

## ·病例报告·

同侧卵巢黏液性交界性肿瘤合并成熟性囊性畸胎瘤一例  
并文献复习

艾和平 李红

三峡大学附属仁和医院放射科, 湖北省宜昌市 443001

通信作者: 李红, Email: 1741433022@qq.com

**【摘要】** 笔者报道了1例同侧卵巢发生黏液性交界性肿瘤(MBT)合并成熟性囊性畸胎瘤(MCT)的病例,从临床症状、实验室检查、影像学表现及病理诊断等方面综合分析了其特点,并通过文献复习总结了该病的影像学表现。MBT和MCT均为卵巢的常见肿瘤,但两种不同性质的肿瘤并存于同侧卵巢非常罕见,其临床表现无特异性,影像学检查若在同一肿块中发现两种肿瘤类型的典型影像学表现,且不能用一种肿瘤解释时,应该考虑同时存在另一种肿瘤的可能。

DOI: 10.3760/cma.j.cn121381-202007001-00078

**Mucinous borderline tumor and mature cystic teratoma arising in the same ovary: a case report and literature review**

Ai Heping, Li Hong

Department of Radiology, Affiliated Renhe Hospital of China Three Gorges University, Yichang 443001, China

Corresponding author: Li Hong, Email: 1741433022@qq.com

**【Abstract】** A rare case of mucinous borderline tumor (MBT) and mature cystic teratoma (MCT) arising in the same ovary was reported. The characteristics of this case were comprehensively analyzed according to clinical symptoms, laboratory examinations, imaging findings and pathological diagnosis. The imaging features of the disease were summarized through literature review. MBT and MCT are common ovarian tumors, but it is very rare that two different types of tumor coexist in the same ovary. Its clinical manifestations are non-specific. When two types of typical imaging findings of different tumors are present in the same ovary, the possibility of the presence of another tumor should be considered.

DOI: 10.3760/cma.j.cn121381-202007001-00078

卵巢黏液性交界性肿瘤(mucinous borderline tumor, MBT)占卵巢上皮性肿瘤的10%~15%<sup>[1]</sup>,其生长方式和细胞学特征介于良性囊腺瘤与恶性浸润癌之间。卵巢成熟性囊性畸胎瘤(mature cystic teratoma, MCT)是卵巢最常见的良性肿瘤,占有卵巢肿瘤的20%以上<sup>[2]</sup>,又被称为皮样囊肿或卵巢皮样瘤。两种肿瘤并存于同侧卵巢的病例非常罕见,本文报道了1例52岁的绝经后女性经组织病理学检查诊断为右侧卵巢MBT合并MCT的病例,并结合文献对其临床及影像学表现进行回顾总结。

**1 患者资料**

患者女性,52岁,绝经1年,因“半年内体重和腹围

增加,且腹胀2月余”于2019年4月6日于三峡大学附属仁和医院就诊。查体结果为腹部膨隆,可扪及质硬肿块,大小为25.0 cm×20.0 cm×9.0 cm,活动性差,腹围106 cm。妇科相关的肿瘤标志物检测结果显示,血清糖类抗原(carbohydrate antigen, CA)125水平为97.38 U/mL, CA199水平为201.20 U/mL,癌胚抗原(CEA)水平为4.48 ng/mL。双侧卵巢的CT结果显示,右侧卵巢巨大团块状囊实混合密度影,大小为30.8 cm×31.2 cm×19.4 cm,边界清,其内见线样分隔,增强扫描后囊壁及其内分隔可见强化,考虑囊腺瘤合并MCT的可能;左侧卵巢另见一团块状脂肪密度影,大小为7.0 cm×3.6 cm×3.0 cm,边缘多发结节,增强扫描后可见强化,与右侧卵巢囊实性病灶的分界欠清,考虑

为MCT(图1中A~C)。阴道超声结果显示,右侧卵巢巨大囊实性肿块,边界清,上缘达肋缘下及剑突下,其内见多个分隔,可见密集细小点状回声,无明显血流信号,考虑为囊腺瘤;左侧卵巢囊性肿块,与上述右侧卵巢囊实性肿块相邻,大小为8.8 cm×8.4 cm×7.2 cm,边界清,内见数个等回声团,其中较大的一个大小为2.8 cm×1.6 cm×1.4 cm,无明显血流信号,考虑为MCT(图1中D)。

患者于2019年4月16日行经腹全子宫+双侧附件切除术。术中见腹盆腔巨大囊性肿块,大小为28.0 cm×30.0 cm×9.0 cm,占据整个腹盆腔,来源于右侧卵巢,呈多房,与子宫、肠管和盆壁粘连,囊腔内囊液约4500 mL。左侧卵巢内一囊性肿块大小为8.0 cm×7.0 cm×4.0 cm。切除双侧附件送快速组织病理学检查,结果显示,右侧卵巢MCT合并黏液性囊腺瘤,倾向于MBT;左侧卵巢MCT。术后组织病理学检查结果为右侧附件内见多房性肿块,其内见大量黏液、脂肪组织及血凝块,囊腔大小不等,长径为0.3~10.0 cm,囊内壁较光滑;镜下见被覆黏液上皮,可见杯状细胞,复层上皮细胞,部分区域呈细乳头状分布;左侧附件肿块内见大量脂肪组织及毛发,壁厚0.1~0.5 cm(图1中E、F)。组织病理学检查诊断为右侧卵巢MBT合并MCT,左侧卵巢MCT。免疫组织化学检查结果为CK7(+)

CK20(+)、绒毛蛋白(villin)(+)、CDX-2(部分+)、CK19(+)、波形蛋白(vimentin)(-),配对盒基因8抗原(PAX-8)(-),增殖细胞核抗原Ki-67(+, 10%)。患者于2019年5月3日好转出院,计划择日再次入院行化疗。2019年5月9日患者再次入院,给予顺铂+环磷酰胺行预防性化疗。2019年11月9日复查超声,结果显示腹盆腔未见明显肿块及积液。随访至2020年6月30日,患者的生命体征平稳,肿瘤无复发。

## 2 讨论

MCT起源于胚胎时期的原始卵巢生殖细胞,好发于生育期女性,2%~11%的MCT中存在黏液性肿瘤<sup>[3]</sup>(包括良性囊腺瘤、交界性肿瘤和腺癌),也有研究结果表明3%~8%的卵巢黏液性肿瘤可合并MCT<sup>[4]</sup>。进一步的研究结果表明,与MCT相关的大多数黏液性肿瘤均起源于MCT中的原始生殖细胞<sup>[5-7]</sup>,但偶尔也可能是碰撞瘤<sup>[6]</sup>,碰撞瘤的诊断要点是两种肿瘤实体间的交界处没有组织成分混合。本病例的组织病理学检查结果未显示出两种肿瘤实体间交界处的组织,因此不能确定碰撞瘤的诊断。MBT合并MCT是非常罕见的病例,通过复习相关文献,我们发现其多发生于生育期女性。MCT多为单侧发病,双侧少见,合并黏

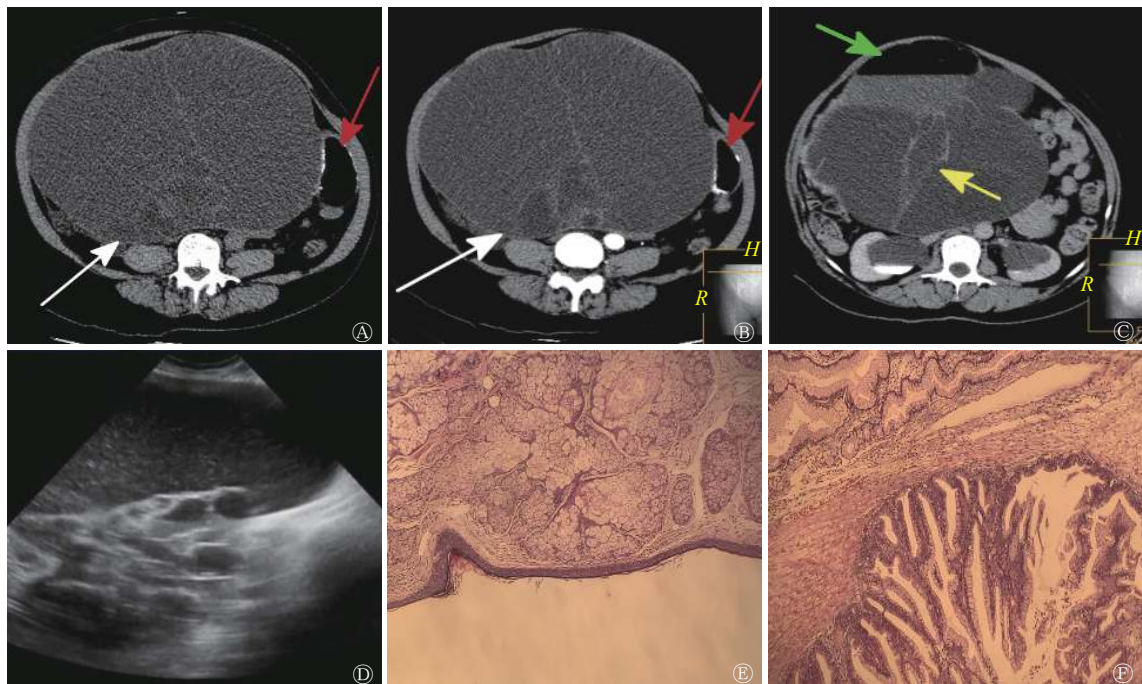


图1 同侧卵巢黏液性交界性肿瘤合并成熟性囊性畸胎瘤患者(女性,52岁)的CT、超声和组织病理学检查图(苏木精-伊红染色,×40) A、B分别为双侧卵巢肿块横断面的CT平扫和增强扫描图,显示右侧卵巢巨大团块状囊混合密度影,其内见不规则实性成分,线样分隔可见强化(白色箭头),左侧卵巢囊性肿块(红色箭头)内见脂肪密度影,边缘钙化;C为右侧卵巢囊实性肿块横断面的CT平扫图,显示脂肪密度影(绿色箭头)及线样分隔(黄色箭头);D为卵巢肿块的超声图,显示右侧卵巢肿块内密集细小点状回声及多个分隔;E为成熟性囊性畸胎瘤的组织病理学检查图,光镜下见分化良好的皮肤组织及皮脂腺结构;F为黏液性交界性肿瘤的组织病理学检查图,光镜下见被覆黏液上皮,可见杯状细胞,复层上皮细胞,可见中至重度核异型,部分区域呈细乳头状分布。CT为计算机断层摄影术

Figure 1 CT, ultrasound and histopathological examination images of the patient with mucinous borderline tumor and mature cystic teratoma in the same ovary (female, 52 years old)

液性肿瘤则多为单侧。本病例的 MCT 为双侧发病, MBT 位于右侧卵巢, 与 MCT 并存。MBT 合并 MCT 的临床症状多不典型, 常表现为腹部肿块、腹痛、腹胀及腹围增加等, 部分为患者体检时偶然发现<sup>[9]</sup>, 由于病灶体积较大, 多数长径达 10~20 cm, 甚至可达 30 cm 以上<sup>[9]</sup>, 因此患者可能出现压迫症状(如呼吸困难、尿频、尿急、排便习惯改变和纳差等)<sup>[10]</sup>。本病例出现腹胀和腹围增加, 未出现明显的压迫症状。妇科肿瘤常伴随血清肿瘤标志物水平的升高, Chen 等<sup>[11]</sup> 回顾性分析了 312 例 MCT 患者的临床资料后认为, CA199 能够辅助诊断 MCT, 血清 CA199 水平的升高多提示肿瘤巨大或双侧发病, 而 CA125 水平的升高在单侧或双侧肿瘤间的差异无统计学意义。本病例的 CA125 和 CA199 水平均升高, 在手术及化疗后肿瘤标志物水平均明显下降, 这可能与 MCT 双侧发病及黏液性肿瘤呈交界性有关。

卵巢 MBT 合并 MCT 的影像学表现多取决于组成肿瘤的性质, 其中, MCT 具有特征性影像学表现, 不难做出判断, 但 MBT 的影像学表现复杂, 难以准确定性, 影像学检查能够起到提示作用。超声对卵巢肿瘤的囊性、实性和混合性具有较好的鉴别能力, 是卵巢肿瘤的首选检查方式。MCT 的超声典型征象包括 Rokitansky 结节或皮样栓(最常见的典型征象)、弥漫性或区域性高振幅回声(次常见的征象)、冰山征、点划线征以及漂浮球征象, 小部分 MCT 可能在囊腔内仅有少量或没有脂肪<sup>[12]</sup>。当 MCT 合并黏液性肿瘤时, 多表现为多房性囊性肿块中探及无回声或非脂肪化液体充盈, 囊壁较厚, 伴不规则实性成分附着于囊壁, 包膜及分隔可见血流信号<sup>[8-10,13]</sup>。本病例腹腔内的多房性囊性肿块经超声探及多个分隔, 但未见明显血流信号, 诊断为囊腺瘤。推测误诊的原因可能是由于肿瘤体积较大, 其中的实性成分相对于肿瘤整体较小, 且位置靠近脊柱, 同时肿瘤内未探及明显的脂肪或钙化成分, 因而未能考虑到两种肿瘤并存的情况。大多数 MCT 的 CT 表现为囊性肿块, 伴或不伴囊壁钙化, 有时可见囊壁不规则结节状增厚, 其中的脂肪密度、骨性结构或齿样钙化等成分具有特异性。当合并有黏液性肿瘤时, 因分泌大量黏液, 导致肿瘤体积较大, 多表现为巨大多房性囊性肿块以及病灶内不均匀实性成分<sup>[14]</sup>, 囊壁不规则结节状增厚<sup>[4]</sup>, 增强扫描时增厚的囊壁、分隔及实性成分明显增强<sup>[13]</sup>。本病例术前的腹腔镜增强 CT 结果显示病灶内呈囊实性, 并可见脂肪密度影, 不难做出 MCT 的诊断, 但其内多房性囊性结构、实性成分及线样分隔强化等特点具有黏液性肿瘤的特征, 不能用单一的 MCT 解释。MRI 可显示不同的组织成分, 有助于囊性占位性病变内部结构的显示, 可见两种肿瘤各自特征性的影像学表现, 但相关病例报道中应用 MRI 的报道十分少见。总之, 当卵巢肿瘤出现两种或两种以上类型肿瘤的典型影像学表现, 且不能用一种肿瘤解释时, 尤其是在卵巢 MCT 的病例中, 应该考虑同时存在另一种肿瘤的可能。

影像学表现能够提示两种肿瘤并存, 但最终的诊断仍需要依靠组织病理学检查。因 MCT 合并黏液性肿瘤的体积常常较大, 因此需要进行彻底取样(特别是肿瘤内的实性成分及增厚的囊壁), 这样才不会遗漏一些特殊的组织成分。其次, 镜检时需要仔细观察两种肿瘤交界处的组织结构, 这对区分混合瘤和碰撞瘤具有诊断意义<sup>[15]</sup>。

与 MCT 关系密切的卵巢黏液性肿瘤多起源于 MCT 内的胃肠型上皮成分<sup>[16]</sup>, 这需要与继发于下消化道(阑尾和结肠等)肿瘤的转移瘤相鉴别, CK7/CK20 表达谱有助于确定与 MCT 相关的黏液性肿瘤的来源。原发性肠型黏液性肿瘤表现为 CK7 弥漫性表达伴 CK20 可变表达, 而转移性肿瘤则常见 CK20 弥漫性表达伴 CK7 局灶性表达<sup>[17]</sup>。在本例 MBT 合并 MCT 的病灶中, CK7 和 CK20 均呈阳性表达, 更支持 MCT 内的胃肠型上皮细胞来源。

MBT 合并 MCT 的病例罕见, 其临床表现无特异性, 影像学表现有提示作用, 最终诊断仍需依靠组织病理学检查, 临床医师需提高对该病的认识, 特别是当卵巢 MCT 的影像学表现中出现其他肿瘤的典型征象而无法用单一肿瘤解释时, 需要考虑到存在其他肿瘤的可能。

**利益冲突** 本研究由署名作者按以下贡献声明独立开展, 不涉及任何利益冲突。

**作者贡献声明** 艾和平负责资料的收集、论文的撰写; 李红负责论文的审阅。

## 参 考 文 献

- [1] Ludovisi M, Foo X, Mainenti S, et al. Ultrasound diagnosis of serous surface papillary borderline ovarian tumor: a case series with a review of the literature[J]. *J Clin Ultrasound*, 2015, 43(9): 573-577. DOI: 10.1002/jcu.22266.
- [2] Bozdağ Z, Tepe NB. Malignant transformation of mature cystic teratomas: a retrospective analysis of 181 cases[J]. *Eur J Ther*, 2020, 26(1): 31-35. DOI: 10.5152/EurJTher.2020.19108.
- [3] Zhang FT, Yu XL, Zeng J, et al. Mucinous tumor arising in a giant sacrococcygeal teratoma: a rare case report[J/OL]. *Medicine (Baltimore)*, 2017, 96(47): e8759[2020-06-30]. [https://journals.lww.com/md-journal/Fulltext/2017/11270/Mucinous\\_tumor\\_arising\\_in\\_a\\_giant\\_sacroccygeal.64.aspx](https://journals.lww.com/md-journal/Fulltext/2017/11270/Mucinous_tumor_arising_in_a_giant_sacroccygeal.64.aspx). DOI: 10.1097/MD.00000000000008759.
- [4] Hwang JH, So KA, Modi G, et al. Borderline-like mucinous tumor arising in mature cystic teratoma of the ovary associated with pseudomyxoma peritonei[J]. *Int J Gynecol Pathol*, 2009, 28(4): 376-380. DOI: 10.1097/PGP.0b013e318191e766.
- [5] Elias KM, Tsantoulis P, Tille JC, et al. Primordial germ cells as a potential shared cell of origin for mucinous cystic neoplasms of the pancreas and mucinous ovarian tumors[J]. *J Pathol*, 2018, 246(4): 459-469. DOI: 10.1002/path.5161.
- [6] Wang YH, Shwartz LE, Anderson D, et al. Molecular analysis of ovarian mucinous carcinoma reveals different cell of origins

- [J/OL]. *Oncotarget*, 2015, 6(26): 22949–22958[2020-06-30]. <https://www.oncotarget.com/article/5146/text>. DOI: 10.18632/oncotarget.5146.
- [7] Kerr SE, Flotte AB, McFalls MJ, et al. Matching maternal isodisomy in mucinous carcinomas and associated ovarian teratomas provides evidence of germ cell derivation for some mucinous ovarian tumors[J]. *Am J Surg Pathol*, 2013, 37(8): 1229–1235. DOI: 10.1097/PAS.0b013e31828f9ecb.
- [8] Delić R. Mucinous cystadenoma of the ovary with carcinoid tumour in a 23-year-old nulliparous woman[J]. *J Obstet Gynaecol*, 2017, 37(4): 543–544. DOI: 10.1080/01443615.2016.1274294.
- [9] Barghi A, Wu M, Nguyen V, et al. Minimally invasive drainage of a giant ovarian mucinous cystadenoma associated with a mature cystic teratoma[J/OL]. *J Surg Case Rep*, 2018, 2018(11): rjy322[2020-06-30]. <https://academic.oup.com/jscr/article/2018/11/rjy322/5222695>. DOI: 10.1093/jscr/rjy322.
- [10] 王欢, 马法库, 李双明, 等. 卵巢成熟型囊性畸胎瘤合并类癌及黏液性囊腺癌 1 例报告[J]. *中国肿瘤临床*, 2015, 42(3): 196. DOI: 10.3969/j.issn.1000-8179.20141856.
- Wang H, Ma FK, Li SM, et al. Mature cystic teratoma of the ovary accompanied by carcinoid and mucinous cystadenocarcinoma: a case report[J]. *Chin J Clin Oncol*, 2015, 42(3): 196. DOI: 10.3969/j.issn.1000-8179.20141856.
- [11] Chen JM, Gao HY, Wang Q, et al. Expression and clinical significance of tumor markers in ovarian mature cystic teratoma [J/OL]. *Clin Exp Obstet Gynecol*, 2016, 43(3): 397–400 [2020-06-30]. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/27328499>. DOI: 10.12891/ceog2128.2016.
- [12] Srisajjakul S, Prapaisilp P, Bangchokdee S. Imaging features of unusual lesions and complications associated with ovarian mature cystic teratoma[J]. *Clin Imag*, 2019, 57: 115–123. DOI: 10.1016/j.clinimag.2019.05.013.
- [13] Ravikanth R. A rare case of collision tumor: MASSIVE mucinous cystadenoma and benign mature cystic teratoma arising in the same ovary[J]. *CHRISMED J Health Res*, 2017, 4(3): 201–203. DOI: 10.4103/cjhr.cjhr\_20\_17.
- [14] 陈超坤, 刘亮, 傅飞先, 等. 囊性胸腺瘤和囊性畸胎瘤的影像学特征及鉴别诊断[J]. *国际放射医学核医学杂志*, 2016, 40(1): 31–34. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1673-4114.2016.01.007.
- Chen CK, Liu L, Fu FX, et al. Imaging features and differential diagnosis of cystic thymoma and cystic teratoma[J]. *Int J Radiat Med Nucl Med*, 2016, 40(1): 31–34. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1673-4114.2016.01.007.
- [15] Peng Y, Lin JH, Guan J, et al. Ovarian collision tumors: imaging findings, pathological characteristics, diagnosis, and differential diagnosis[J/OL]. *Abdom Radiol (NY)*, 2018, 43(8): 2156–2168 [2020-06-30]. <https://link.springer.com/article/10.1007/s00261-017-1419-6>. DOI: 10.1007/s00261-017-1419-6.
- [16] Fujii K, Yamashita Y, Yamamoto T, et al. Ovarian mucinous tumors arising from mature cystic teratomas — a molecular genetic approach for understanding the cellular origin[J]. *Hum Pathol*, 2014, 45(4): 717–724. DOI: 10.1016/j.humpath.2013.10.031.
- [17] Vang R, Gown AM, Zhao CQ, et al. Ovarian mucinous tumors associated with mature cystic teratomas: morphologic and immunohistochemical analysis identifies a subset of potential teratomatous origin that shares features of lower gastrointestinal tract mucinous tumors more commonly encountered as secondary tumors in the ovary[J]. *Am J Surg Pathol*, 2007, 31(6): 854–869. DOI: 10.1097/PAS.0b013e31802efb45.

(收稿日期: 2020-07-01)

· 读者 · 作者 · 编者 ·

## 医学论文中有关实验动物描述的要求

在医学论文的描述中,凡涉及到实验动物者,在描述中应符合以下要求:(1)品种、品系描述清楚;(2)强调来源交待;(3)遗传背景;(4)微生物学质量;(5)明确体质量;(6)明确等级;(7)明确饲养环境和实验环境;(8)明确性别;(9)有无质量合格证;(10)有对饲养的描述(如饲料类型、营养水平、照明方式、温度要求、湿度要求);(11)所有动物数量准确;(12)详细描述动物的健康状况;(13)对动物实验的处理方式有单独清楚的交待;(14)全部有对照,部分可采用双因素方差分析。

医学实验动物分为四级:一级为普通动物(CV);二级为清洁动物(CL);三级为无特殊病原体动物(SPF);四级为无菌动物(GF)或悉生动物(GN)。省部级及以上课题、研究生毕业论文等科研实验必须应用二级以上的实验动物。

本刊编辑部