

妊娠合并卵巢幼年型颗粒细胞瘤病例回顾并文献复习

刘姝含¹, 卢彩霞², 李臻², 田泉², 范佳琦¹, 孟婷¹, 刘建新^{2*}

¹青岛大学, 山东 青岛

²青岛大学附属医院, 山东 青岛

收稿日期: 2022年1月16日; 录用日期: 2022年2月9日; 发布日期: 2022年2月18日

摘要

目的: 分析妊娠合并幼年型颗粒细胞瘤(juvenile granulosa cell tumor, JGCT)的临床特点、诊断要点、治疗及预后, 提高诊断水平。方法: 回顾性分析一例妊娠合并JGCT患者的诊治经过, 并复习国内外发表的6例病例报道。结果: 患者29岁, 孕2产1, 因“停经39 + 6周, 发现羊水减少半天”入院, 入院完善检查后行球囊引产失败, 遂急诊剖宫产术分娩一健康男婴, 术中见左侧卵巢一大约4.0 * 3.0 cm囊实性肿物, 行子宫下段横切口剖宫产术 + 左侧卵巢囊肿剥除术, 术后病理回报: 符合幼年型颗粒细胞瘤。患者因个人因素拒绝行二次手术。结论: 妊娠合并早期卵巢幼年型颗粒细胞瘤非常罕见, 术前诊断困难, 目前确诊依据组织病理及免疫组织化学染色检查, 治疗首选手术治疗。

关键词

妊娠, 卵巢肿瘤, 幼年型颗粒细胞瘤

Pregnancy with Ovarian Type Juvenile Granulosa Cell Tumor: Retrospective Analysis of Clinical Cases and Literature Review

Shuhan Liu¹, Caixia Lu², Zhen Li², Quan Tian², Jiaqi Fan¹, Ting Meng¹, Jianxin Liu^{2*}

¹Qingdao University, Qingdao Shandong

²The Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

Received: Jan. 16th, 2022; accepted: Feb. 9th, 2022; published: Feb. 18th, 2022

*通讯作者 Email: liujianxinlr@126.com

文章引用: 刘姝含, 卢彩霞, 李臻, 田泉, 范佳琦, 孟婷, 刘建新. 妊娠合并卵巢幼年型颗粒细胞瘤病例回顾并文献复习[J]. 临床医学进展, 2022, 12(2): 1028-1035. DOI: 10.12677/acm.2022.122150

Abstract

Objective: To analyze clinical features, diagnosed key points, treatment and prognosis of ovarian type juvenile granulosa cell tumor (JGCT) during pregnancy in order to improve the level of diagnosis. **Methods:** To retrospectively analyze a case of pregnancy with JGCT and review relevant literatures. Other six patients' clinical manifestations were summarized, and related literatures were reviewed. **Result:** A 29-year-old female patient, G2P1, was admitted for menolipsis after 39 + 6 weeks, and amniotic fluid decreased by half a day. A normal healthy baby was delivered. Emergency cesarean delivery and exploratory laparotomy were carried out after balloon induction failure. A 4.0 * 3.0 cm cystic solid mass was founded in the left ovary, resection of the left ovarian mass was performed and the postoperative pathological diagnosis was JGCT. The patient refused treatment for social reasons. **Conclusion:** Pregnancy with JGCT is rare and difficult to diagnose. The diagnosis depends on pathological and immunohistochemical staining, and surgical treatment is the first choice.

Keywords

Pregnancy, Ovarian Neoplasms, Juvenile Granulosa Cell Tumor

Copyright © 2022 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 引言

卵巢颗粒细胞瘤(granulosa cell tumor, GCT)是由卵巢性索间质向上皮分化形成的一种具有内分泌功能的低度恶性肿瘤,占卵巢原发肿瘤的6%,在卵巢恶性肿瘤中发病率不足5%。70%的卵巢颗粒细胞瘤可分泌雌激素。根据组织学类型分为成人型颗粒细胞瘤(adult granulosa cell tumor, AGCT)和幼年型颗粒细胞瘤(juvenile granulosa cell tumor, JGCT)。成年型主要发生在围绝经期和绝经后妇女,多发于50~55岁,约占卵巢肿瘤的1%,占颗粒细胞瘤的95%。幼年型多发生于幼年及青少年,仅占有所有GCT的5%,30岁前发病率约为97%。

妊娠合并卵巢恶性肿瘤在临床上较为少见,占妊娠合并恶性肿瘤的3%~6%,其发病率居妊娠合并生殖道恶性肿瘤第二位[1][2]。妊娠合并幼年型颗粒细胞瘤极为罕见,占JGCT的10%。目前国内外对类似病例报道较少,以个案报道为主,且多为肿瘤破裂或巨大肿瘤引起腹痛等临床表现。目前尚未发现妊娠合并JGCT的系统分析或诊疗指南。现回顾分析青岛大学附属医院(我院)收治的一例足月妊娠合并早期幼年型颗粒细胞瘤的病例资料,复习总结相关书籍及文献,探讨JGCT的临床特点、鉴别诊断、治疗方法,以期对妊娠合并JGCT的诊治提供参考。

2. 病历报告

2.1. 病史及体格检查

患者女,29岁,孕2产1,因“停经39+6周,发现羊水减少半天”于2021年08月18日入我院产科治疗。既往体健,无手术史,无药物食物过敏史。2年前患者孕足月经会阴侧切分娩一男婴,重3620g,现体健。查体:T:36.3℃,P:79次/分,R:19次/分,BP:123/79 mmHg。发育正常,神志清楚,浅表淋巴结无肿大。心肺听诊无异常,腹部膨隆,无压痛、反跳痛。产科情况:宫高:34 cm,腹围:103 cm,

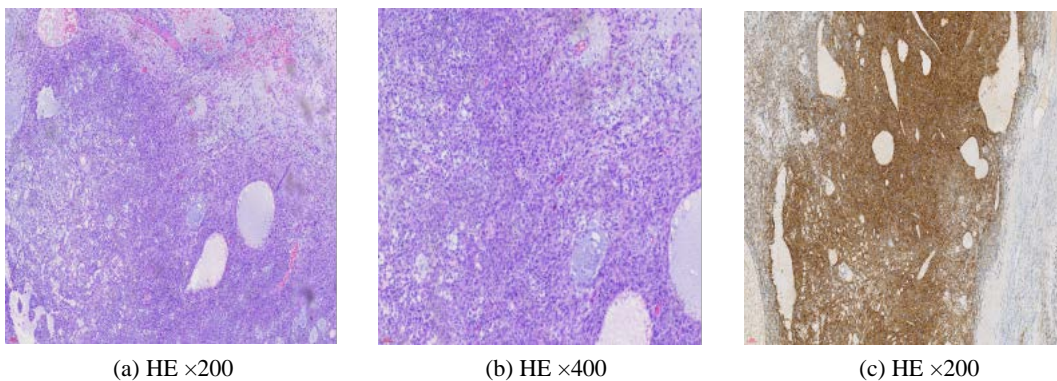
胎方位：LOA，先露半固定，胎心率：145 次/分，胎动可及，估计胎儿体重 3700 g 左右。可触及不规律宫缩，无阴道流血流液。骨盆外侧量：髂棘间径 24 cm，髂嵴间径 26 cm，骶耻外径 19 cm，坐骨结节间径 9 cm，耻骨弓角度 90°。内诊：先露为头，宫颈朝中，质中，宫颈管消退 50%，宫口未开，胎膜未破。

2.2. 辅助检查

自述早孕期 B 超提示卵巢囊肿(未见报告)。2021-05-12 OGTT: 4.5-10.50-6.20 mmol/l。2021-08-04 血脂: 甘油三酯 3.45 mmol/L, 总胆固醇 6.31 mmol/L, 高密度脂蛋白胆固醇 1.86 mmol/L, 低密度脂蛋白胆固醇 3.44 mmol/L。2021-08-18 胎儿超声: 单胎, 左枕前。主要测值: 双顶径 9.5 cm; 头围 33.3 cm; 股骨长 7.2 cm; 腹围 35.5 cm。胎盘位于子宫前壁及宫底, 胎盘成熟度: II 级, 胎盘下缘距宫颈内口大于 2 cm。羊水指数: 5.9 cm。脐动脉血流参数: S/D: 2.43; RI: 0.59; PI: 0.86。胎心率: 152 次/分, 律齐。意见: 晚期妊娠, 单活胎脐带绕颈一周, 羊水量偏少。入院诊断: 1) 妊娠期糖尿病; 2) 妊娠合并羊水偏少; 3) 孕 39 周 6 天 G2P1 (纠正后); 4) 脐带缠绕; 5) 妊娠合并会阴瘢痕。

2.3. 诊治经过

入院后监测血糖、糖化血红蛋白等检查、检验, 患者羊水偏少诊断明确, 患者宫颈条件不成熟, 于 2021-08-18 夜间放置子宫颈扩张球囊促宫颈成熟; 2021-08-19 9:00 行艾利斯钳破膜顺利, 见羊水清亮, 量约 2 ml。破膜后胎心 145 次/分。患者 10: 03 胎心下降至 60 次/分, 持续约 1 分钟左右, 查宫口未开, 偶有宫缩, 胎头 S-3, 未扪及条索状搏动感, 经术前讨论胎儿存在急性宫内窘迫风险, 短时间难以经阴分娩, 决定在全身麻醉下行急诊剖宫产术。腹腔探查见: 子宫色泽粉红, 不旋, 子宫下段长 7 cm, 形成良好, 无病理性缩复环, 无出血点, 术中徒手娩出一男性活婴(身长 50 cm, 体重 3700 g, 1 分钟 Apgar 评分 10 分, 5 分钟 Apgar 评分 10 分)。缝合子宫切口后探查双侧附件, 双侧卵巢多囊样改变, 右侧卵巢略增大, 未触及肿物, 左侧卵巢触及大小约 4 × 3 cm 囊实性肿物, 活动度可, 与周围组织无粘连。探查盆腹腔脏器、大网膜及腹膜均未见异常。送检冰冻病理: (左侧卵巢囊肿)组织内见黄体囊肿, 部分区域呈实性排列, 可见核分裂, 生长活跃, 建议石蜡多取材, 除外性索间质肿瘤可能。告知患者及家属并详细沟通后, 患者及家属要求行左侧卵巢囊肿切除术, 遂行左卵巢囊实性肿物剥除术。手术顺利, 术后第三天出院。术后第八天病理结果回报: 左侧卵巢囊肿: 灰白灰红组织多块, 合计大小 3 × 3 × 2 cm, 部分区域表面光滑, 切面灰白灰红质韧。(左侧卵巢囊肿)肿瘤组织呈多结节状排列, 肿瘤细胞呈梭形及卵圆形, 可见核分裂, 生长活跃, 可见大小不等的滤泡样结构, 内见嗜碱性分泌物, 部分区域间质疏松水肿伴黏液变, 部分伴出血坏死并囊性变(图 1), 结合免疫组化结果, 意见为幼年型粒层细胞瘤。多次电话联系患者及家属, 告知术后组织病理结果及相关风险, 建议产后复查、妇科随诊。患者及家属至今未复诊, 新生儿情况良好。目前继续电话随访。该病例报道均获得病人及家属的知情同意。



(a) HE ×200

(b) HE ×400

(c) HE ×200

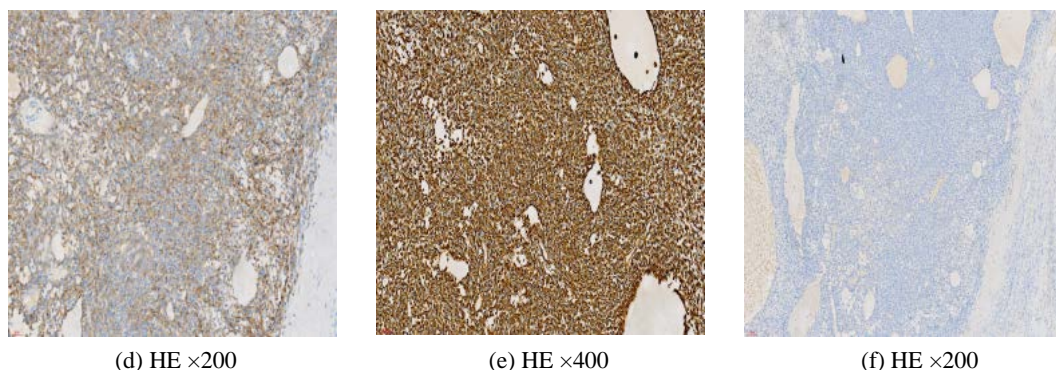


Figure 1. (a) The follicular arrangement of tumor cells; (b) The nucleus of the tumor have dark chromatin, oval cells and mitosis; (c) CD99 positive; (d) CD56 positive; (e) Vimentin positive; (f) EMA negative

图 1. (a) 肿瘤细胞滤泡样排列; (b) 肿瘤细胞核染色质较深, 细胞卵圆形, 可见核分裂; (c) CD99 阳性; (d) CD56 阳性; (e) Vimentin 阳性; (f) EMA 阴性

3. 讨论

幼年型颗粒细胞瘤这一概念由 Scully 于 1977 年首次提出[3], 仅占 GCT 的 5%。98%为单侧[4]。大多数患者确诊时为早期, 肿瘤多局限于单侧卵巢, 预后良好。若出现肿瘤破裂或生长突破卵巢, 术后复发风险高。病理镜检肿瘤间卵泡样结构、结节或弥散性生长。肿瘤细胞多胞质丰富, 核分裂象常见, 明显核异型约占 10%~15%。我院近年来共诊治妊娠晚期合并 JGCT 患者 1 例。为了提高对妊娠晚期合并 JGCT 的诊治率, 我们查阅相关文献, 综述性分析既往国内外文献报道的 6 例妊娠合并 JGCT 病例的临床特点、妊娠结局、诊治情况(表 1~3) [5]-[11]。

Table 1. Basic information of 6 cases of pregnancy complicated with juvenile granulosa cell tumor

表 1. 妊娠合并幼年型颗粒细胞瘤 6 例母儿基本情况

| 病例 | 就诊时间 | 年龄 | 孕产次 | 就诊孕周 | 分娩孕周(周) | 症状 | 胎心监护 | 胎儿超声检查 |
|----|-----------|----|------|--------|---------|------|------------|--------|
| 1 | 2017/4/30 | 27 | G2P0 | 39 + 3 | 39 + 3 | 腹痛 | NST II 型 | 未见明显异常 |
| 2 | 2016 | 27 | - | 37 + 2 | 37 + 2 | - | - | 未见明显异常 |
| 3 | 2000/4/25 | 31 | G2P1 | 20 | 22 | 腹痛 | 胎心 140 次/分 | 未见明显异常 |
| 4 | 1984 | 13 | G1P0 | 26 | 38 | 腹痛 | 胎心 154 次/分 | 未见明显异常 |
| 5 | 2010 | 24 | G1P0 | 12 + 3 | 37 | 阴道流血 | NST II 型 | 未见明显异常 |
| 6 | 1997 | 33 | - | 15 | 38 | - | - | 未见明显异常 |

注: NST II 型: 无应激实验反应型。

Table 2. Auxiliary examination, treatment and outcome of pregnancy complicated with juvenile granulosa cell tumor: report of 6 cases

表 2. 妊娠合并幼年型颗粒细胞瘤 6 例辅助检查、治疗和转归情况

| 病例 | CA 125 | AFP、CA 199 | 病理 | 超声 | 术中探查 | 手术方式 | 终止妊娠方式 | 二次手术 | 化疗 | 转归 |
|----|--------|------------|--|------------------------------------|---|--------------|--------------|-------------|--------------------|---------------|
| 1 | - | - | ER(+), PR(+), AE1/AE3(+), EMA(-), 肾母细胞瘤 I 蛋白(-), CD56(+), α -抑制素(+) | 右下腹 8.5 cm \times 6.1 cm 囊实性混合回声 | 右侧卵巢见一 8.0 \times 6.0 cm 卵巢肿物, 已破裂出血, 质糟脆, 界限不清 | 剖宫产术 + 剖腹探查术 | 剖宫产术 + 剖腹探查术 | 淋巴结取样均未见癌转移 | 紫杉醇 + 顺铂方案化疗 3 个疗程 | 随访 9 个月, 恢复良好 |

Continued

| | | | | | | | | | | |
|---|-------|---|---|--|--|---|----------------|--|---------------------------------|----------------------------------|
| 2 | - | - | 瘤细胞核无核沟, 有一定异型性, 核分裂象不多。 CKpan(+), In-hibin 散在少数 (+), CD99(+), ER(+), CK7(-) | 右侧附件囊肿 | 右侧卵巢大小约 6 × 5.5 cm 囊性包块, 活动度好, 囊液色黄, 无粘连 | 剖宫产术 + 剖腹探查术 | 剖宫产术 + 剖腹探查术 | - | - | - |
| 3 | - | - | 左卵巢幼年型颗粒细胞瘤 | 左上腹可见 13 cm × 9.78 cm × 12.5 cm 不均匀中等强度回声, 其内可见多个大小不等圆形似蜂窝状及多房分隔状低回声 | 腹腔内淡黄色腹水约 400 ml、左侧卵巢肿瘤约 13 cm × 12 cm × 10 cm、实性、质脆、已破裂、与腹膜有 8 cm × 2 cm 粘连 | 左侧附件切除(社会因素) | 利凡诺羊膜腔内注射引产术 | 全子宫 + 右侧附件 + 部分阴道壁 + 阑尾 + 大网膜切除术+双侧卵巢动静脉高位结扎术。术后病理: 左侧卵巢 JGCT、子宫直肠凹及大网膜转移瘤结节。术中腹腔放入卡铂 400 mg。术中诊断: 妊娠合并左侧卵巢 JGCT 破裂、IIIc 期 | 静脉及腹腔化疗 | 术后 50 天出现恶液质、盆腹腔广泛转移结节 |
| 4 | - | - | 卵巢幼年型颗粒细胞瘤 | 右腹部可见一 17.5 × 9.4 × 12 cm 囊块 | 腹腔积血, 右侧卵巢肿瘤大小约 13 × 16 × 5 cm, 质软 | 右侧卵巢 + 部分网膜 + 小肠系膜病灶切除 + 左侧卵巢活组织检查, 术中诊断: 妊娠合并右侧卵巢 JGCT 破裂 IIIB 期 | 顺产 | 部分网膜 + 阑尾切除术 + 腹膜、肠系膜、小肠浆膜多点组织活检术, 无腹水, 无增大淋巴结 | 甲氨蝶呤 + 放线菌素 D + 苯丁酸氮芥方案化疗 2 个疗程 | 随访 7 年, 恢复良好, CA125、AFP、B-HCG(-) |
| 5 | 19.91 | - | 卵巢幼年型颗粒细胞瘤(高分化), α-抑制素(+), CD99(+), 胎盘碱性磷酸酶(-) | 左侧卵巢 8.8 × 7.1 cm 肿块, 边界清晰 | 左侧卵巢肿块约 8.8 × 9.0 × 10.0 cm 大小 | 左侧卵巢病变 + 左侧输卵管切除术 | 顺产 | - | - | 随访 9 个月, 恢复良好 |
| 6 | - | - | 卵巢幼年型颗粒细胞瘤 | 左侧卵巢 6.7 × 4.7 × 4.0 cm 肿块 | - | 剖宫产术 + 左侧卵巢切除术 | 剖宫产术 + 左侧卵巢切除术 | - | - | 恢复良好 |

Table 3. Pregnancy complicated with juvenile granulosa cell tumor: report of 5 neonates

表 3. 妊娠合并幼年型颗粒细胞瘤 5 例新生儿情况

| 病例 | 1/5/10 min Apgar 评分(分) | 诊断 | 随访 |
|----|------------------------|------|----|
| 1 | 10-10-10 | 单胎活产 | 体健 |
| 2 | 10-10-10 | 单胎活产 | 体健 |
| 3 | - | - | - |
| 4 | 7-8-10 | 单胎活产 | 体健 |
| 5 | 10-10-10 | 单胎活产 | 体健 |
| 6 | 10-10-10 | 单胎活产 | 体健 |

3.1. 临床特点

JGCT 主要发生于幼年及青少年,合并妊娠者多为妊娠早期发现,单侧发病率约占 98%,一般体积较大,平均直径约为 12.5 cm [12]。JGCT 主要表现为腹部包块、雌激素分泌增多引起的相关症状,如性早熟、月经紊乱、绝经后出血等。一名 33 岁孕妇的多囊性 JGCT 检查提示,几乎所有肿瘤细胞中都存在甾体激素生成的转录因子(Ad4BP),切除组织黄体间质细胞中存在 P450_{scc}、3 β -HSD、P450_{c17}、P450_{arom},表明肿瘤细胞获得了合成类固醇激素的潜能[7]。妊娠期的激素环境可能改变了颗粒细胞的组织和生物学特征。10%患者因肿瘤破裂导致急腹症行手术治疗。本例为妊娠晚期合并 JGCT,追问病史,该患者早孕期腹部 B 超提示左侧卵巢囊肿,未见报告,具体不详,早孕期未行治疗。患者平素月经不规律,提示患者孕前雌激素水平异常,不排除患者带瘤妊娠可能。本次就诊无其他相关症状体征,诊断依赖影像学检查、术中探查及组织病理。术前诊断较为困难,易误诊为卵巢黄体囊肿、多囊卵巢综合征。对月经不规律女性孕前检查发现卵巢囊肿者应进一步检查雌激素、抑制素、CA125 等。结合患者性别、年龄、月经周期和临床症状进行激素检测和超声检查对 JGCT 的诊断、治疗、手术疗效评估和预测复发等具有重要意义。GCT 是一种功能性肿瘤,发现后应尽快手术治疗。但目前尚无对妊娠合并 JGCT 患者具体时机及治疗方式的诊治指南。

3.2. 诊断及鉴别诊断

妊娠合并 JGCT 的早期诊断较为困难。JGCT 发病较早且孕妇大多身体条件良好,对并发恶性肿瘤代偿能力较强,警惕性差。影像学检查在 JGCT 诊断方面缺乏特异性征象,能够发现卵巢占位和腹腔积液,但难以作出 JGCT 的诊断;实验室检查也缺乏特异性标志物,对 JGCT 常出现的雌激素、抑制素、CA125 增高也可发生在其他肿瘤中。对超声提示妊娠早期卵巢囊肿多考虑为黄体囊肿,因此对早期无症状卵巢囊肿的诊断对预后非常重要[13]。临床症状如月经不规律、性早熟,辅助检查如 B 超、血清 AMH、抑制素、CA125、AFP、CA199、性激素如雌激素等对妊娠并发 JGCT 的早期诊断具有一定辅助作用。AMH 预测卵巢 GCT 特异性及敏感性较高,结合抑制素对早期诊断有一定辅助作用。据统计,超声检查可发现约 70%卵巢肿瘤患者[14],通过肿瘤内部回声形态、血流信号变化、腹盆腔积液等鉴别肿瘤良恶性。目前肿瘤标志物不是产前常规检查项目,妊娠期绒毛、蜕膜、羊水等组织中均含有较多 CA125 成分。研究表明妊娠期间 CA125 波动较大,对妊娠期肿瘤诊断具有一定局限性,可作为检测患者复发及预后的一项指标。因此临床医生丰富的临床经验和对异常检验结果、超声检查结果敏锐的洞察力至关重要。本文报道患者有月经紊乱病史且孕期超声发现卵巢囊肿患者应行进一步检查。

目前 JGCT 的确诊主要依靠病理学检查,Bouffet 等于 1997 年提出 JGCT 的诊断标准:① 肿瘤细胞呈弥漫性、结节状、管状、条索状或排列成大小不规则的滤泡结构;② 罕见 CallExner 小体;③ 颗粒细胞或(和)卵泡膜细胞的明显黄素化;④ 颗粒细胞核染色质深;⑤ 细胞核有丝分裂指数高,有异型性。符合 5 项标准中至少 2 项可确诊[15]。免疫组织化学可辅助鉴别诊断。抑制素对性索间质细胞肿瘤的诊断具有较高的敏感度和特异度,大部分瘤细胞也表达广谱角蛋白、CD99、CD56 等,但一般不表达 EMA。本例患者即依靠术后病理、免疫组化诊断该病。

3.3. 治疗及预后

根据 2020 年 WHO 肿瘤组织病理学分类,JGCT 属于交界性肿瘤,目前临床发现的 JGCT 多为 FIGO I 期[16],其总体预后较好但是复发较早,具有“晚期复发”的特征[17]。对于肿瘤的残留及复发,目前主要依靠影像学检查,血清学检验具有一定意义但证据级别不高,缺乏特异性标志物。复发患者的治疗及远期预后的预测因子数据少,尚无明确建议,有待进一步研究证实。若肿瘤在很长一段时间内仍局限

在卵巢中，可以通过保守手术进行治疗，以保持这些年轻患者的生育能力。对患者的随访旨在尽早发现患者可能的复发。Amant 等人指出，卵巢癌合并妊娠时，终止妊娠不太可能改善孕产妇结局[18]。怀孕期间可行手术或化疗，治疗应遵循标准化治疗方式并尽可能继续妊娠。一般认为妊娠早期药物治疗不会增加先天畸形的发生率，提倡待产至足月妊娠，减少因早产引起的新生儿并发症。以上病例说明带瘤妊娠或早期手术切除肿瘤后继续妊娠至足月对新生儿健康状况无明显影响。孕妇妊娠合并 JGCT 是否会引起新生儿远期并发症相关数据较少，仍待进一步研究。

FIGO 分期表明 I 期 JGCT 患者可行单侧输卵管卵巢切除术保留生育能力，II-IV 期患者建议采用肿瘤细胞减灭术[19]。对于妊娠合并卵巢肿瘤的处理需综合考虑母亲、胎儿及肿瘤三者的关系，选取合适的手术时机、手术方式以及后续治疗进行综合管理，根据患者具体情况进行个体化治疗。目前认为性索间质细胞肿瘤可分阶段进行诊断和治疗。孕期可行单侧附件切除术、网膜切除术、腹膜细胞学检查和多点活组织检查。孕晚期可行终止妊娠前初次减压；孕期手术 + 产后化疗；孕期手术 + 化疗 + 产后二次手术 + 化疗[6]。如果需要在产后手术以减少妊娠并发症，孕期应尽可能减少相关手术干预。对于 JGCT，手术是首要的治疗方法，仅行手术单纯切除对 Ia 期肿瘤有效。术中需行腹水细胞学检查，局部切除大网膜、阑尾、盆腔淋巴结以确定手术分期。对有保留生育能力需求的患者可行同侧输卵管卵巢切除术；对不需要保留生育能力的老年患者可行全子宫+双附件切除术。对晚期癌症或复发患者应遵循卵巢癌的治疗原则进行治疗。对 Ic 期以上及有丝分裂指数高(5/10HPF)的患者[20]，NCCN 指南推荐使用博来霉素、依托泊苷、顺铂、紫杉醇/卡铂方案进行化疗。研究证明多药化疗、顺铂方案可提高 JGCT 的治疗效果[21]。

本病例中患者无自觉症状，早孕期超声检查提示囊肿未予处理，晚孕期超声未予相关报告，手术仅行剖宫产术 + 左侧卵巢病损切除术，患者在后续随访中依从性差。提示手术医师在剖宫产术中对患者腹腔情况应行细致检查，对异常情况谨慎处理；提高临床及辅助科室医师及患者对罕见疾病的认知，加强综合管理对精准医疗、改善预后起到了重要作用。

4. 总结

综上所述，妊娠合并幼年型卵巢颗粒细胞瘤极罕见，预后较好，部分患者肿瘤复发和转移迅速，威胁母婴健康，首选手术治疗，确诊需依靠组织病理学检查。需要进一步研究来阐明 JGCT 的有效肿瘤标志物及诊治方案。其临床分期和细胞有丝分裂状态是决定 JGCT 治疗方案和预后时参考的重要因素。

参考文献

- [1] Gezginç, K., Karataylı, R., et al. (2011) Ovarian Cancer during Pregnancy. *International Journal of Gynaecology and Obstetrics*, **115**, 140-143. <https://doi.org/10.1016/j.ijgo.2011.05.025>
- [2] Berveiller, P., Carbonne, B. and Mir, O. (2014) Cancer and Pregnancy: An Overview for Obstetricians and Gynecologists. *American Journal of Obstetrics and Gynecology*, **211**, 82. <https://doi.org/10.1016/j.ajog.2014.02.007>
- [3] Scully, R.E. (1977) Ovarian Tumors. A Review. *The American Journal of Pathology*, **87**, 686-720.
- [4] 沈铿, 马丁, 狄文. 妇产科学[M]. 第3版. 北京: 人民卫生出版社, 2015: 337.
- [5] Powell, J.L., Johnsonet, N.A., Bailey, C.L., et al. (1993) Management of Advanced Juvenile Granulosa Cell Tumor of the Ovary. *Gynecologic Oncology*, **48**, 119-123. <https://doi.org/10.1006/gyno.1993.1019>
- [6] Xu, H., Shu, C., Li, N., et al. (2011) Early Pregnancy Complicated with Juvenile Granulosa Cell Tumor. *The American Journal of the Medical Sciences*, **342**, 435-437. <https://doi.org/10.1097/MAJ.0b013e318229992c>
- [7] Sasano, H., Imaizumi, H. and Nagura, H. (1997) Juvenile Granulosa Cell Tumor Discovered during Pregnancy: Case Report with Immunohistochemical Study of Steroidogenesis. *Pathology International*, **47**, 325-328. <https://doi.org/10.1111/j.1440-1827.1997.tb04501.x>
- [8] 陈洋, 李阳, 吴富菊. 妊娠合并卵巢幼年型颗粒细胞瘤破裂一例[J]. 新医学, 2018, 49(9): 687-690.
- [9] 鱼庆, 简文文, 王敏. 妊娠合并卵巢幼年型颗粒细胞瘤一例报告及文献复习[J]. 国际妇产科学杂志, 2018, 45(4):

408-410.

- [10] 邱奇. 足月妊娠合并卵巢幼年型颗粒细胞瘤 1 例病例报道并文献复习[J]. 吉林医学, 2017, 38(10): 1991-1992.
- [11] 郭艳巍, 刘新伟, 刘丽. 妊娠合并卵巢幼年型颗粒细胞瘤破裂 1 例[J]. 中国实用妇科与产科杂志, 2001(8): 18.
- [12] 彭萍, 沈铿, 郎景和, 等. 卵巢幼年型颗粒细胞瘤四例临床分析[J]. 中华妇产科杂志, 2002, 37(7): 402-404.
- [13] Clement, P.B. (1993) Tumor-Like Lesions of the Ovary Associated with Pregnancy. *International Journal of Gynecological Pathology*, **12**, 108-115. <https://doi.org/10.1097/00004347-199304000-00004>
- [14] 车艳辞, 王言奎. 妊娠合并卵巢良性肿瘤的诊断与处理[J]. 中国实用妇科与产科杂志, 2007, 23(10): 743-744.
- [15] Bouffet, E., Basset, T., Chetail, N., *et al.* (1997) Juvenile Granulosa Cell Tumor of the Ovary in Infants: A Clinicopathologic Study of Three Cases and Review of the Literature. *Journal of Pediatric Surgery*, **32**, 762-765. [https://doi.org/10.1016/S0022-3468\(97\)90029-4](https://doi.org/10.1016/S0022-3468(97)90029-4)
- [16] Rusterholz, K.R. and MacDonald, W. (2009) An Unusual Case of Juvenile Granulosa Cell Tumor of the Ovary. *Radiology CASE reports*, **4**, 178. <https://doi.org/10.2484/rcr.v4i1.178>
- [17] 中国抗癌协会妇科肿瘤专业委员会. 卵巢恶性肿瘤诊断与治疗指南(2021 年版) [J]. 中国癌症杂志, 2021, 31(6): 490-500.
- [18] Amant, F., Brepoels, L., Halaska, M.J., *et al.* (2010) Gynaecologic Cancer Complicating Pregnancy: An Overview. *Best Practice & Research: Clinical Obstetrics & Gynaecology*, **24**, 61-79. <https://doi.org/10.1016/j.bpobgyn.2009.08.001>
- [19] Ma, L., Zhang, L., Zhuang, Y., *et al.* (2018) A Rare Case Report of Ovarian Juvenile Granulosa Cell Tumor with Massive Ascites as the First Sign, and Review of Literature: Case Report and Review of Literature. *Medicine*, **97**, e10916. <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000010916>
- [20] Khosla, D., Dimri, K., Pandey, A.K., *et al.* (2014) Ovarian Granulosa Cell Tumor: Clinical Features, Treatment, Outcome, and Prognostic Factors. *North American Journal of Medical Sciences*, **6**, 133-138. <https://doi.org/10.4103/1947-2714.128475>
- [21] Schneider, D.T., Calaminus, G., Wessalowski, R., *et al.* (2002) Therapy of Advanced Ovarian Juvenile Granulosa Cell Tumors. *Klinische Padiatrie*, **214**, 173-178. <https://doi.org/10.1055/s-2002-33183>