

СЛУЧАЙ ЮВЕНИЛЬНОЙ АНДРОГЕНПРОДУЦИРУЮЩЕЙ ОВАРИАЛЬНОЙ ОПУХОЛИ ИЗ КЛЕТОК СЕРТОЛИ-ЛЕЙДИГА У 16-ЛЕТНЕЙ ПАЦИЕНТКИ



Сибирская Елена Викторовна^{1,2,3}, Караченцова Ирина Васильевна^{2,3}, Закирова Нодира Исламовна⁴, Никифорова Полина Олеговна^{1,2}, Кириллова Юлия Александровна¹, Лепшокова Асият Джашдуювна⁵

1 - Российская детская клиническая больница — филиал федерального государственного автономного образовательного учреждения высшего образования «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, г. Москва;

2 – Федеральное государственное автономное образовательное учреждение высшего образования «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, г. Москва;

3 - Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Российский университет медицины» Министерства здравоохранения Российской Федерации, г. Москва;

4 - Самаркандский государственный медицинский университет, Республика Узбекистан, г. Самарканд;

5 - Федеральное государственное автономное образовательное учреждение высшего образования Первый Московский государственный медицинский университет имени И. М. Сеченова Министерства здравоохранения Российской Федерации (Сеченовский Университет), г. Москва

16 ЁШИЛИ АЁЛ БЕМОРДА СЕРТОЛИ-ЛЕЙДИГ ХУЖАЙРАЛАРИДАН ЮВЕНИЛ АНДРОГЕН ИШЛАБ ЧИҚАРУВЧИ ОВАРИАЛ ЎСМА ҲОЛАТИ

Сибирская Елена Викторовна^{1,2,3}, Караченцова Ирина Васильевна^{2,3}, Закирова Нодира Исламовна⁴, Никифорова Полина Олеговна^{1,2}, Кириллова Юлия Александровна¹, Лепшокова Асият Джашдуювна⁵

1 - Россия болалар клиник шифохонаси - Россия Федерацияси Соғлиқни сақлаш вазирлигининг "Н.И. Пирогов номидаги Россия миллий тадқиқот тиббиёт университети" олий таълим федерал давлат автоном таълим муассасасининг филиали, Москва ш.;

2 – Россия Федерацияси Соғлиқни сақлаш вазирлигининг “Н.И.Пирогов номидаги Россия миллий тадқиқот тиббиёт университети” Федерал давлат автоном олий таълим муассасаси, Москва ш.;

3 - Россия Федерацияси Соғлиқни сақлаш вазирлигининг "Россия тиббиёт университети" Олий таълим федерал давлат бюджети таълим муассасаси, Москва ш.;

4 – Самарканд давлат тиббиёт университети, Ўзбекистон Республикаси, Самарканд ш.;

5 - Федерал давлат автоном олий таълим муассасаси Россия Федерацияси Соғлиқни сақлаш вазирлигининг И.М.Сеченов номидаги Биринчи Москва давлат тиббиёт университети (Сеченов университети), Москва ш.

A CASE OF JUVENILE ANDROGEN-PRODUCING OVARIAN TUMOR OF SERTOLI-LEYDIG CELLS IN A 16-YEAR-OLD PATIENT

Sibirskaya Elena Viktorovna^{1,2,3}, Karachentsova Irina Vasilievna^{2,3}, Zakirova Nodira Islamovna⁴, Nikiforova Polina Olegovna^{1,2}, Kirillova Yulia Aleksandrovna¹, Lepshokova Asiyat Djashduevna⁵

1 - Russian Children's Clinical Hospital - branch of the Federal State Autonomous Educational Institution of Higher Education "Russian National Research Medical University named after N.I. Pirogov" of the Ministry of Health of the Russian Federation, Moscow;

2 - Federal State Autonomous Educational Institution of Higher Education "Russian National Research Medical University named after N.I. Pirogov" of the Ministry of Health of the Russian Federation, Moscow;

3 - Federal State Budgetary Educational Institution of Higher Education "Russian University of Medicine" of the Ministry of Health of the Russian Federation, Moscow;

4 - Samarkand State Medical University, Republic of Uzbekistan, Samarkand;

5 - Federal State Autonomous Educational Institution of Higher Education First Moscow State Medical University named after I. M. Sechenov of the Ministry of Health of the Russian Federation (Sechenov University), Moscow

e-mail: elsibirskaya@yandex.ru

Резюме. Мақолада 16 ёшли аёл беморда Сертоли-Лейдиг хужайраларидан андроген ишлаб чиқарувчи тухумдон ишишининг кам учрайдиган клиник ҳолати келтирилган. Ушбу ўсмалар барча тухумдон неоплазмаларининг 0,5% дан камроғини ташкил қилади ва ҳаддан ташқари андроген ишлаб чиқариши билан тавсифланади, бу эса гирсутизм, дисфония ва аменорея каби белгиларга олиб келади. Таъхис шикоятлар,

текишири, лаборатория ва ултратовуш маълумотлари асосида ўрнатилади. Беморга лапароскопик ўнг томонлама салпинго-оофорэктомиа ўтказилди, бу эса вақт ўтиши билан тестостерон даражасининг пасайишига олиб келди. Гистологик текиширув таъхисни тасдиқлади, яъни Сертоли-Лейдиг ҳужайраларининг мўтадил дифференциацияланган жойлари бўлган ёмон дифференциал ўсмаси тасвири. Мақолада биз ушбу патологиянинг ноёблигини таъкидлаймиз ва таъхисга мультидисциплинар ёндашувга эътибор қаратамиз. Шуни ҳам таъкидлашни истардикки, бундай ўсмалар янада самарали даволаш усулларини ишлаб чиқиши учун комплекс ёндашув ва кейинги тадқиқотларни талаб қилади.

Калит сўзлар: болалар гинекологияси, клиник ҳолат, тухумдон ўсмалари, андроген ишлаб чиқарувчи ўсимта, Сертоли-Лейдиг ўсмаси, вирилизация синдроми, тухумдон неоплазмаси.

Abstract. This article presents a rare clinical case of an androgen-producing ovarian tumor of Sertoli-Leydig cells in a 16-year-old patient. Such tumors account for less than 0.5% of all ovarian neoplasms and are characterized by excessive androgen production, leading to symptoms such as hirsutism, dysphonia, and amenorrhea. The diagnosis was established based on the patient's complaints, clinical examination, laboratory tests, and ultrasound findings. The patient underwent laparoscopic right salpingo-oophorectomy, which subsequently resulted in a dynamic decrease in testosterone levels. Histological examination confirmed the diagnosis, revealing a poorly differentiated Sertoli-Leydig cell tumor with areas of moderate differentiation. This article highlights the rarity of this pathology and emphasizes the importance of a multidisciplinary approach to diagnosis. We also stress that such tumors require a comprehensive approach and further research to develop more effective treatment methods.

Keywords: pediatric gynecology, clinical case, ovarian tumors, androgen-producing tumor, Sertoli-Leydig tumor, virilization syndrome, ovarian neoplasm.

Введение. Наиболее часто опухоли яичников возникают в период полового созревания (10-14 лет), что обусловлено изменением гормональной активности и гонадотропной стимуляцией. Злокачественные новообразования яичников у детей и подростков встречаются крайне редко (не более 3,3% случаев). Успешность лечения во многом определяется своевременной диагностикой [1].

Опухоли из клеток Сертоли-Лейдига представляют собой редкие новообразования яичников, относящиеся к группе опухолей стромы и/или полового тяжа. Согласно литературным данным, они составляют около 1% всех опухолей стромы и/или полового тяжа и менее 0,2-0,5% всех опухолей яичников [2-3].

При кариотипировании у пациенток с опухолью яичников из клеток Сертоли-Лейдига выявляются различные хромосомные аномалии, включая трисомии (6, 8, 12), мозаицизм X-хромосомы и хромосомные перестройки, в том числе в Y-хромосоме. На молекулярном уровне выделяют три подтипа этих опухолей: DICER1, FOXL2 и так называемый диккий тип (DICER1/FOXL2 wild type).

Мутации в гене DICER1 обнаруживаются у 44% пациентов с умеренно- или низкодифференцированными опухолями и сопровождаются андрогенными симптомами, такими как гирсутизм, дисфония и аменорея. Эти мутации связаны с нарушением экспрессии гена CYP19A1, кодирующего фермент ароматазу, который преобразует тестостерон в эстрадиол. Снижение активности ароматазы ведет к накоплению тестостерона, что объясняет выраженные андрогенные симптомы [4].

Мутации в гене FOXL2 обнаруживаются у 19% пациентов, преимущественно у женщин в постменопаузе. Как и мутации DICER1, они характерны для умеренно- и низкодифференцированных опухолей. Симптоматика, связанная с гиперэстрогемией, напоминает клиническую картину гранулезоклеточных опухолей, что может затруднять диагностику. Мутации FOXL2 ведут к гиперэкспрессии гена CYP19A1, что увеличивает продукцию эстрадиола и приводит к гиперэстрогемии [4].

Существуют две классификации опухолей из клеток Сертоли-Лейдига. Первая, предложенная Meyer, редко используется в настоящее время, так как была создана в середине XX века и потеряла актуальность. Вторая классификация была предложена в 2002 году R.H. Young и R.E. Scully и остается актуальной на сегодняшний день. Она включает шесть подтипов: высоко-, умеренно- и низкодифференцированные, с гетерологическими компонентами, сетевидные и смешанные [5].

Клетки Сертоли обеспечивают структурную поддержку развивающимся половым клеткам и участвуют в регуляции гормонального фона, в частности, в синтезе антимюллерового гормона (АМГ). Клетки Лейдига синтезируют андрогены, такие как тестостерон, в ответ на стимуляцию лютеинизирующим гормоном (ЛГ); в женском организме их активность минимальна [6].

У мальчиков эти опухоли могут ассоциироваться с наследственными синдромами, такими как синдром Пейтца-Егерса. Опухоли клеток Сертоли могут вырабатывать повышенное количество эстрогенов, что приводит к феминизации и гинекомастии. Опухоли клеток Лейдига способствуют повышенной выработке тестостерона, что может привести к преждевременному половому созреванию. Опухолевый рост также может повреждать ткань семенников и нарушать сперматогенез, что негативно влияет на репродуктивную функцию [7].

Отличительными особенностями опухолей из клеток Сертоли-Лейдига является секреция андрогенов, под воздействием которых происходит дефеминизация женского организма. У пациенток 30-50% случаев наблюдаются выраженные признаки вирильного синдрома: гирсутизм, дисфония, гипертрофия клитора, а также метаболические нарушения, включая ожирение, нарушение углеводного и белкового обмена, артериальную гипертензию [6,8].

Интраоперационно такие опухоли чаще всего односторонние и ограничены яичниковой тканью. По данным некоторых исследователей, в 10% случаев возможен разрыв яичника, а у 4% пациенток наблюда-

ется асцит [9].

При диагностике опухолей Сертоли-Лейдига важно учитывать широкий спектр возможных диагнозов: это может быть андрогенпродуцирующая опухоль надпочечников, стромальный текоматоз (гипертекоз) яичников или эндогенный гиперкортицизм (синдром Иценко-Кушинга).

Редкая встречаемость и недостаточная осведомленность о данной патологии делают её актуальной для изучения. Важно уметь правильно интерпретировать неспецифическую клиническую картину и диагностические критерии, чтобы предотвратить развитие осложнений. Диагностика андрогенпродуцирующих опухолей включает в себя гормональное исследование уровня тестостерона (общего и свободного) и инструментальные методы, такие как УЗИ, КТ или МРТ по показаниям.

Описание случая. В «РДКБ — филиал ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова Минздрава России» в отделение детской гинекологии поступила 16-летняя девочка с жалобами на аменорею в течение семи месяцев, дисфонию и повышенное оволосение (гирсутизм).

На момент поступления состояние девочки оценивалось как средней степени тяжести. Известно, что по отцовской линии семейный анамнез отягощен: миопия, ожирение и СД 2 типа.

На момент осмотра оценка по шкале Ферримана-Галвея у пациентки составляет 17 баллов: верхняя губа - усы на полпути от внешнего края, подбородок - легкое полное покрытие, грудь - нет роста волос, верхняя часть спины - нет роста волос, нижняя часть спины - волосы в области крестца с распространением на латеральные поверхности, верхняя часть живота (выше пупка) - несколько сильнее, но все еще по средней линии, нижняя часть живота (ниже пупка) - полоска волос по средней линии, плечо - нет роста волос, бедра - густое полное покрытие.

Наружные половые органы развиты правильно, гипертрофия клитора 1 степени, हुмен бахромчатый, кольцевидный, не гиперемирован, эстрогенезирован; матка в срединном положении, не увеличена, плотная, подвижная, безболезненная, придатки с обеих сторон не определяются, область их безболезненна.

Результаты обследования. При проведении УЗИ органов малого таза выявлено: матка расположена срединно, anflexio. Размеры тела матки 38x27x40 мм, шейки матки 36x17 мм, угол между телом и шейкой выражен хорошо, структура миометрия однородная, полость матки и цервикальный канал не расширены. М-ЭХО 6 мм, В правом яичнике определяется гетерогенная структура 44x29x32 мм (рис. 1), ЦДК не усилен; левый яичник размерами 38x26x35мм. Свободная жидкость в тазу не выявлена. Заключение: образование правого яичника.

По данным лабораторных исследований в гормональном профиле: ЛГ-13.33 мЕд/л (фолликулярная фаза 1-12 мЕд/л, овуляторная фаза 12-25 мЕд/л, лютеиновая фаза 1-8 мЕд/л), ФСГ-1.82 мЕд/л (фолликулярная фаза 3-12 мЕд/л, овуляторная фаза 5-20 мЕд/л, лютеиновая фаза 1.5-9 мЕд/л), пролактин-636.4 мЕд/л (100-500 мЕд/л), эстрадиол-19.84 (фолликулярная фаза 20-140 пг/мл, овуляторная фаза 35-450 пг/мл лютеиновая фаза 25-235 пг/мл), тестостерон-18.21нмоль/л (0.49-1.7 нмоль/л), кортизол-464 нмоль/л (138-690

нмоль/л), 17-ОП-2.23 нмоль/л (фолликулярная фаза 0.3-2.0 нмоль/л, лютеиновая фаза 0.9-9.0 нмоль/л), АКТГ-15.36, ТТГ-3.338, Т4св-8.51 пмоль/л (9-22 пмоль/л), АТ-ТПО-0.25 Ед/мл (<35 Ед/мл), онкомаркер СА125-5.3 Ед/мл (0.35-35.0 Ед/мл)

Учитывая клинико-лабораторные данные, ЭХОграфическую картину и данные гормонального профиля. Пациентке рекомендовано оперативное лечение в объеме сальпинго-оофорэктомия справа.



Рис.1 Ультразвуковая картина образования правого яичника (андрогенпродуцирующая опухоль) пациентки 16 лет

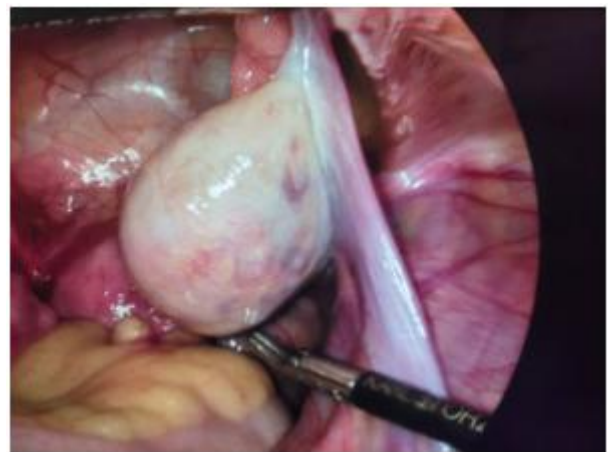


Рис.2. Лапароскопическая интраоперационная картина андрогенпродуцирующей опухоли правого яичника у пациентки 16 лет

Интраоперационная картина. В брюшной полости выпота нет. Печень не увеличена: коричневого цвета, поверхность гладкая, край острый. Желчный пузырь серо-голубого цвета, в спавшемся состоянии. Круглая связка печени не утолщена, не отечна. Желудок спавшийся, поверхность не изменена. Петли тонкой кишки и толстой кишки не расширены, поверхность розовая, брыжейка - не изменена. Червеобразный отросток осмотрен на всем протяжении не изменен. Тело матки нормальной величины. Серозный покров розовый. Правая маточная труба: визуально не изменена, фимбриальный отдел свободен. Правый яичник увеличен в размерах до 4 см за счет опухолевого компонента (рис.2). Принимая во внимание высокие значения тестостерона 18.21нмоль/л. В связи с подозрением на опухоль Сертоли-Лейдига принято решение о выполнении сальпинго-оофорэктомия справа. Левый яичник дольчатого строения, размерами 3x2,5x3 см, не изменен.



Рис. 3. Макропрепарат удаленной опухоли яичника у пациентки 16 лет

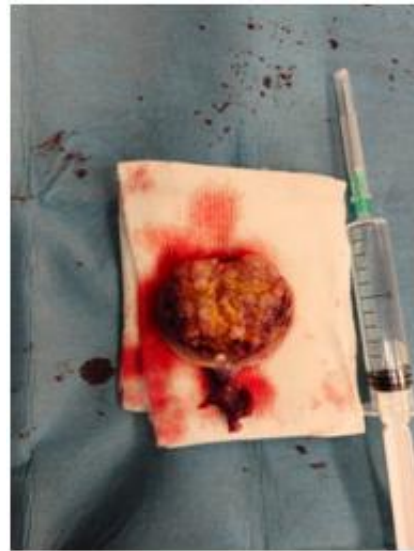


Рис. 4. Макропрепарат удаленной опухоли на разрезе у пациентки 16 лет

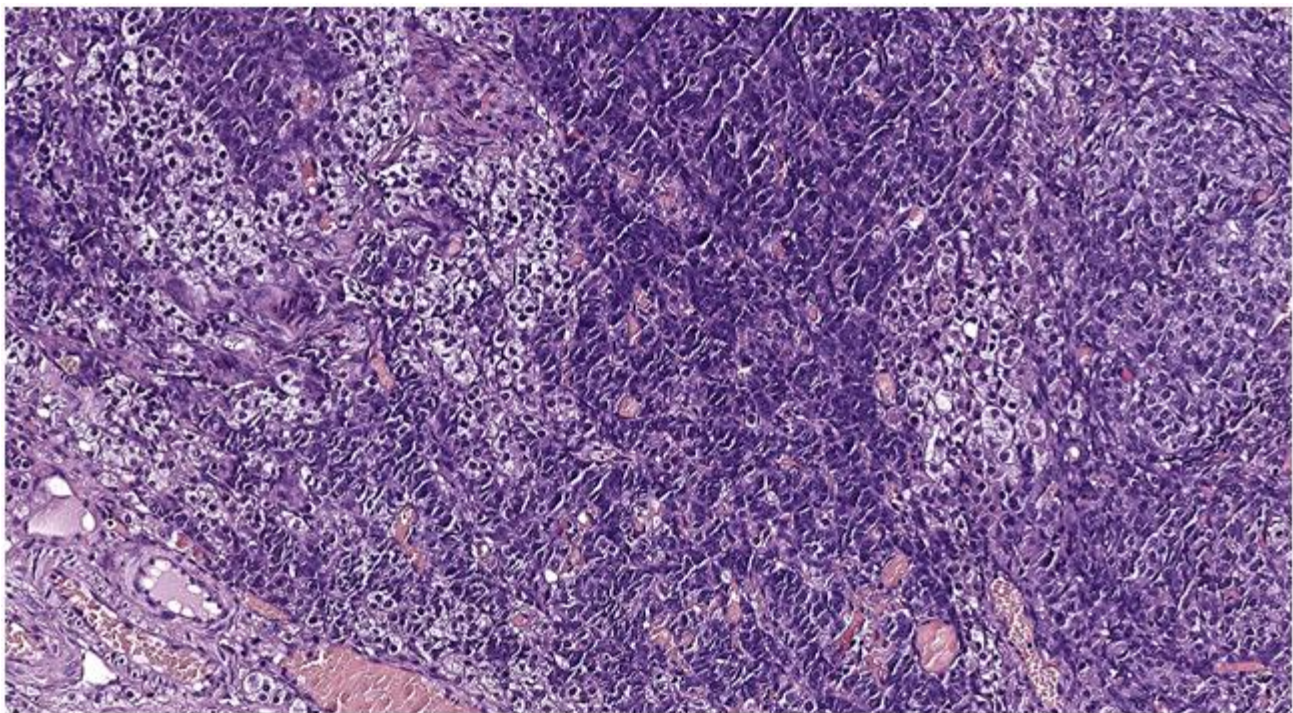


Рис. 5. Опухоль построена из полей гиперхромных веретеновидных клеток, среди которых встречаются комплексы округлых клеток с обильной оптически пустой цитоплазмой. Окраска гематоксилином и эозином (Г-Э), увеличение микроскопа x150

Ход операции: с помощью биполярной коагуляции произведено пересечение собственной связки яичника, воронкотазовой связки, мезосальпинкса, мезовариума и маточного конца трубы (правые придатки отсечены). Гемостаз полный. Измененные правые придатки извлечены целиком и без повреждений через левую апертуру в эндобаге (рис. 3).

На рисунке 4 представлена макроскопическая структура опухоли Сертоли-Лейдига правого яичник у пациентке 16 лет на разрезе.

Через три дня после проведенной операции по данным лабораторного исследования уровень тестостерона снизился до значений 1.89 нмоль/л (0,49-1,7).

Послеоперационный период протекал без осложнений. Пациентка выписана домой в удовлетвори-

тельном состоянии.

По данным гистологического исследования (рис.5,6,7) в яичнике отмечается рост опухоли, построенной из веретеновидных клеток с нечеткими границами, с одним округло-овальным ядром, в некоторых ядрах просматриваются ядрышки, в некоторых везикулярный хроматин. Цитоплазма клеток умеренная, эозинофильная, в части клеток везикулярная. Клетки формируют сплошные солидные поля, трабекулярные структуры, местами определяются железистоподобные просветы. Встречаются комплексы полигональных и округлых клеток со светлой цитоплазмой и округлым ядром с выступающим ядрышком. Клетки формируют гнездовые структуры. Митотическая активность неравномерная, от 2 до 10 митозов в 2 кв.мм.

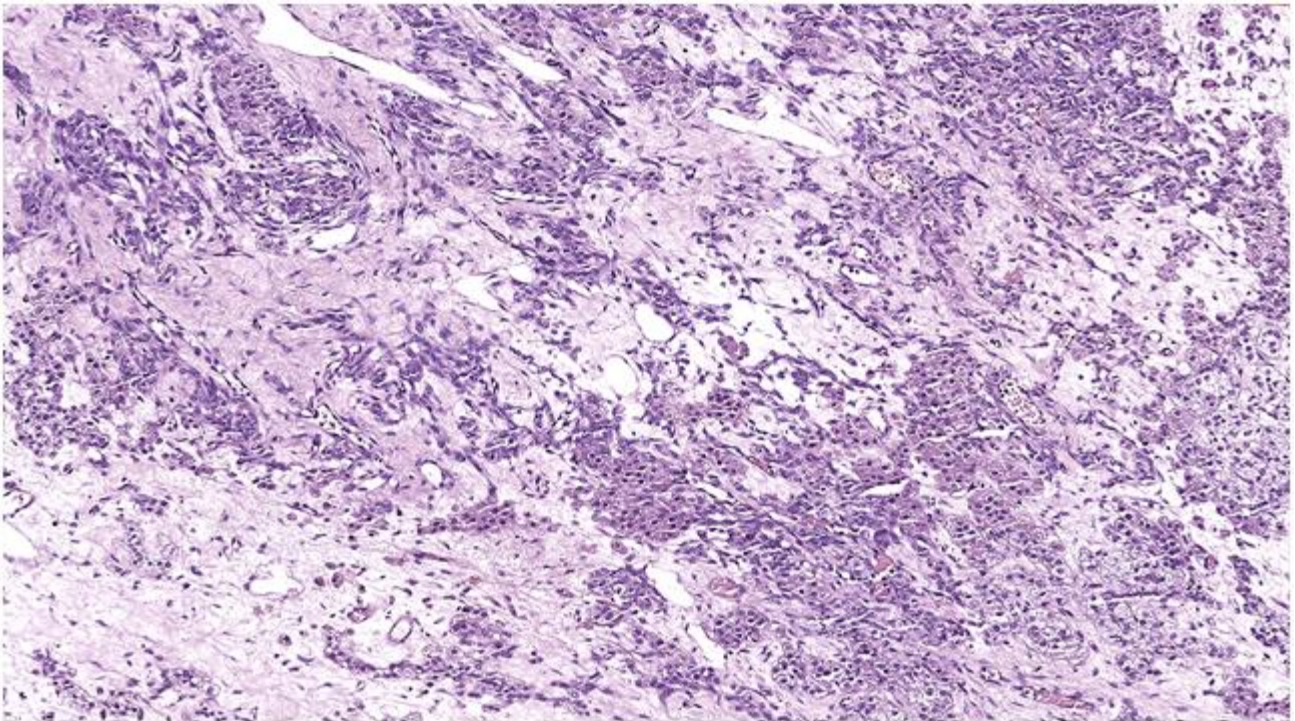


Рис. 6. Скопления полигональных клеток с эозинофильной цитоплазмой среди отёчного межклеточного матрикса. Г-Э, ув. x150

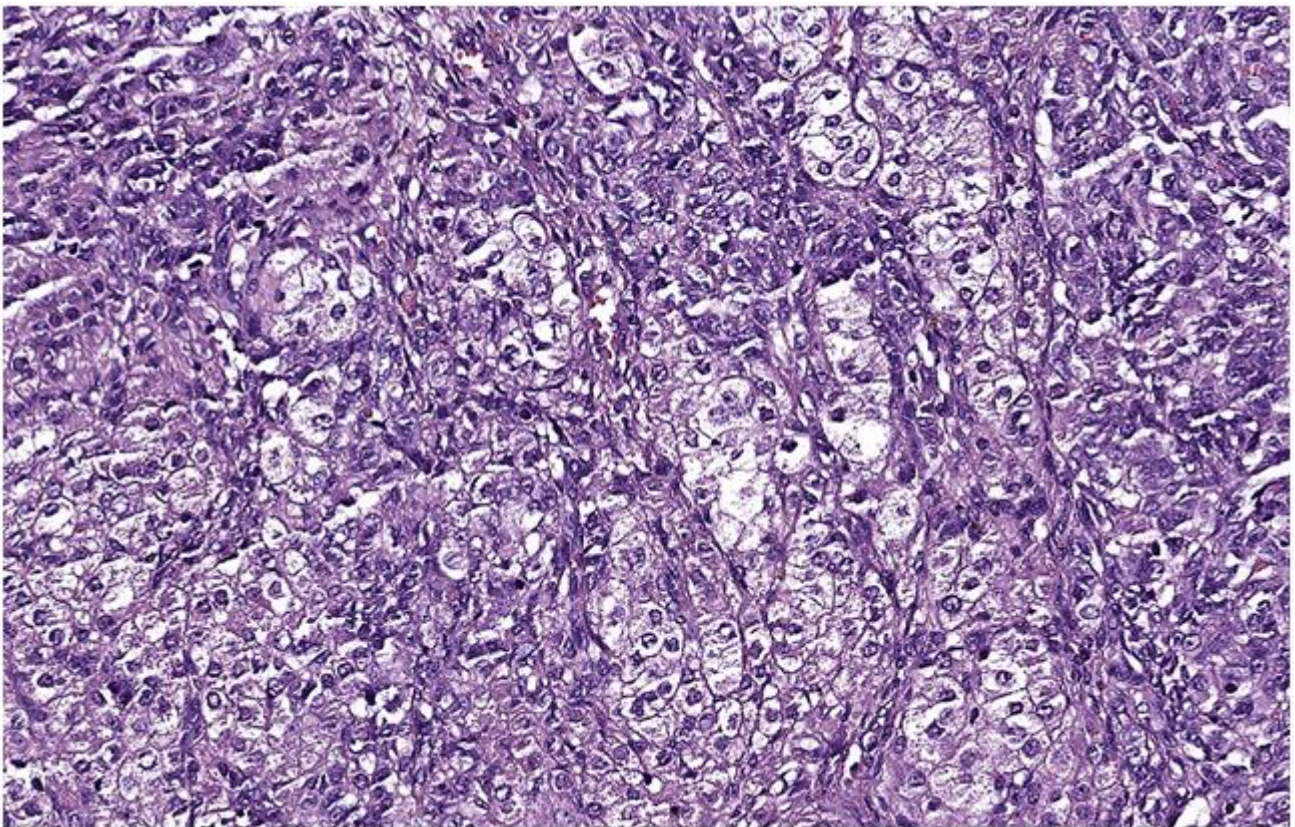


Рис. 7. Гнёздные и тубулярные структуры, сформированные неопластическими элементами с обильной эозинофильной или оптически пустой цитоплазмой. Г-Э, ув. x350

Строма отечная, фокально гиалинизированная, отмечаются мелкие кровоизлияния. По краю определяется нормальная ткань яичника с наличием фолликулов на разных стадиях созревания. Не выявлено лимфоваскулярной инвазии. Края резекции интактны. Ткань маточной трубы обычного строения, без опухолевого роста. При иммуногистохимическом исследо-

вании в клетках Сертоли выявлена экспрессия calretinin, panCK, WT1, очаговая слабая inhibin A. В клетках Лейдига выявлена экспрессия inhibin A, melan A, слабая CD99. Отсутствует экспрессия AFP, EMA.

Обсуждение. В данной статье представлен уникальный клинический случай андрогенпродуцирующей опухоли яичника у 16-летней девочки. Из-за ред-

кости данного состояния, до сих пор остаётся открытым вопрос о выборке оптимальной хирургической тактики и дальнейших мерах противоопухолевого лечения.

Главной целью хирургического вмешательства при злокачественных новообразованиях яичников у детей и подростков является сохранение фертильности. По этой причине особое внимание следует уделять минимизации лучевой нагрузки на область малого таза у девочек, так как это значительно снижает риск самопроизвольных выкидышей в будущем [1].

Что касается химиотерапии, она, как дополнение к лечению, имеет важное значение в адьювантной и неоадьювантной терапии, особенно при высоком риске развития метастазов, как было отмечено в статье Европейского общества медицинской онкологии (ESMO) в 2018 году. Тем не менее, хирургическое вмешательство остаётся основным методом лечения [14].

Прогноз заболевания во многом зависит от стадии опухоли, степени её дифференцировки, митотического индекса, наличия гетерологичных элементов и состояния капсулы. На основании этих факторов патологоанатомы могут оценить вероятность рецидива.

Адьювантная химиотерапия, как правило, не рекомендуется при I стадии заболевания. Однако пациентам с неблагоприятным прогнозом может быть показана послеоперационная химиотерапия. Руководство ESMO рекомендует адьювантную химиотерапию пациентам с андрогенпродуцирующей опухолью из клеток Сертоли-Лейдига с гетерологичными элементами, низкодифференцированными опухолями и для стадий IB и IC, поскольку такие опухоли более склонны к рецидиву или распространению. Химиотерапию также могут рекомендовать пациентам с умереннодифференцированными опухолями. Наиболее часто применяются комбинированные схемы, при этом стандартным выбором считается протокол ВЕР (блеомицин, этопозид, цисплатин), а также применяются VAC (винкристин, актиномицин D, циклофосфамид) и CFP (циклофосфамид, фторурацил, преднизолон). Однако пока нет единого мнения о том, какая комбинация является наиболее эффективной, что связано с недостаточным количеством исследований в силу редкости данной патологии [4].

Рекомендации по лечению опухолей из клеток Сертоли-Лейдига (SLCT) на различных стадиях FIGO и при рецидиве заболевания:

Молодые пациентки с опухолями на стадии FIGO I:

Хирургическое вмешательство: для пациенток с высокодифференцированными опухолями стадии Ia/Ib рекомендуется односторонняя овариэктомия (USO), с возможностью или без оценки противоположного яичника, особенно если необходимо сохранить фертильность. В случаях умеренной или низкой дифференциации на стадии I или при разрыве капсулы на стадии Ic, может быть проведена только односторонняя овариэктомия при условии полного стадирования.

Адьювантная химиотерапия: Хотя этот вопрос остаётся спорным для пациенток стадии I, химиотерапия рекомендуется при наличии неблагоприятных прогностических факторов, таких как умерен-

ная/низкая дифференциация, гетерологичные элементы, ретиформный узор, высокая митотическая активность и разрыв опухоли (стадия Ic).

Постменопаузальные женщины с опухолями на стадии FIGO I:

Хирургическое вмешательство: Абдоминальная гистерэктомия и двусторонняя овариэктомия (BSO) с полным стадированием рекомендованы в соответствии с руководствами ESMO, если деторождение завершено, из-за неизвестного злокачественного потенциала.

Адьювантная химиотерапия: Рекомендуется пациенткам с риском рецидива опухоли, включая стадии IC, умеренно- или низкодифференцированные опухоли, или при наличии гетерологичных элементов или ретиформного узора.

Стадии FIGO II-IV:

Хирургическое вмешательство: Абдоминальная гистерэктомия и двусторонняя овариэктомия с полным стадированием.

Адьювантная химиотерапия: Рекомендуется для всех пациенток из-за высокого риска рецидива при стадиях II-IV.

Радиотерапия: Хотя данные ограничены, радиотерапия может рассматриваться в качестве альтернативы химиотерапии, особенно если патология локализована в тазовой области.

При рецидивирующем течении опухоли из клеток Сертоли-Лейдига, предложена следующая тактика:

Хирургия: предпочтительно радикальное хирургическое вмешательство.

Адьювантная химиотерапия: преимущественно на основе платиновых препаратов после хирургического лечения. Радиотерапия может быть полезна в локализованных случаях, когда оперативное вмешательство не представляется возможным.

Андрогенпродуцирующие опухоли из клеток Сертоли-Лейдига, хотя и являются редкой патологией, требуют особого внимания клиницистов разных специальностей. Химиотерапия является одним из дополняющих видов терапии при комбинированном лечении таких опухолей и требует индивидуального подхода.

Заклучение. Нами описан редкий случай андрогенпродуцирующей опухоли яичника у девочки 16 лет. В настоящее время актуальным остаётся вопрос о целесообразности проведения и оптимальных режимах дозирования химиотерапии для таких пациентов.

Литература:

1. Сибирская Е. В. и др. Злокачественные новообразования яичников у детей и подростков // *Детская хирургия*. – 2018. – Т. 22. – №. 5. – С. 258-262.
2. Tandon R. et al. A rare ovarian tumor—Sertoli-Leydig cell tumor with heterologous element // *Medscape General Medicine*. – 2007. – Т. 9. – №. 4. – С. 44.
3. Chakrabarti I. et al. Sertoli–Leydig cell tumour of ovary with heterologous elements—a case report // *Int J Gynecol Obstet*. – 2010. – Т. 13. – №. 1.
4. Muscat C., Calleja-Agius J. Review on Sertoli-Leydig cell tumours of the ovary. – 2024.
5. Sun X. et al. Immunohistochemical and ultrastructural analysis of a poorly differentiated pediatric age Sertoli–Leydig cell tumor // *Experimental and molecular pathology*.

– 2007. – Т. 82. – №. 1. – С. 63-67.

6. Chen L., Tunnell C. D., De Petris G. Sertoli-Leydig cell tumor with heterologous element: a case report and a review of the literature //International Journal of Clinical and Experimental Pathology. – 2014. – Т. 7. – №. 3. – С. 1176.

7. Karseladze A. I. et al. Androgen Insensitivity Syndrome with Bilateral Gonadal Sertoli Cell Lesions, Sertoli-Leydig Cell Tumor, and Paratesticular Leiomyoma: A Case Report and First Systematic Literature Review //Journal of Clinical Medicine. – 2024. – Т. 13. – №. 4. – С. 929.

8. Khalloufi C. et al. Ovarian Sertoli-Leydig tumor: A tricky tumor case report //International Journal of Surgery Case Reports. – 2023. – Т. 105. – С. 108043.

9. Young R. H., Scully R. E. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumors: a clinicopathological analysis of 207 cases //The American journal of surgical pathology. – 1985. – Т. 9. – №. 8. – С. 543-569.

10. Xu Q., Zou Y., Zhang X. F. Sertoli-Leydig cell tumors of ovary: A case series //Medicine. – 2018. – Т. 97. – №. 42. – С. e12865.

11. Shrestha S. et al. Pure Sertoli cell tumor of the ovary: A case report //Clinical Case Reports. – 2022. – Т. 10. – №. 5. – С. e05892.

12. Tian C. et al. Ultrasound examination assisted clinical diagnosis of Leydig cell tumor of ovary: An extremely rare case report //Medicine. – 2022. – Т. 101. – №. 52. – С. e32451.

13. Калашникова М. Ф. и др. Вирилизующая опухоль яичника: проблемы дифференциальной диагностики //Проблемы эндокринологии. – 2019. – Т. 65. – №. 4. – С. 273-277.

14. Ray-Coquard I. et al. Non-epithelial ovarian cancer: ESMO Clinical Practice Guidelines for diagnosis, treatment and follow-up //Annals of Oncology. – 2018. – Т. 29. – С. iv1-iv18.

15. Адамян Л. В., Сибирская Е.В. и др. Клиника и диагностика доброкачественных опухолей и опухолевидных образований яичников у девочек (аналитический обзор) //Репродуктивное здоровье детей и подростков. – 2016. – №. 4 (69). – С. 18-26.

16. Serife K. et al. 15-Year-Old Patient with an Unusual Alpha-FetoproteinProducing Sertoli-Leydig Cell Tumor of Ovary //Case Reports in Obstetrics and Gynecology. – 2022. – Т. 2022. – №. 1. – С. 4759826.

17. Hughes C. E. et al. Bilateral Ovarian Sertoli-Leydig Cell Tumors Harboring DICER1 Germline and Distinct Somatic Mutations: Case Report and Literature Review //Fetal and Pediatric Pathology. – 2023. – Т. 42. – №. 3. – С. 472-478.

18. Zhang H. et al. Large moderately-differentiated ovarian Sertoli-Leydig cell tumor in a 13-year-old female: A case report //Oncology Letters. – 2016. – Т. 11. – №. 2. – С. 1110-1112.

19. Alam K. et al. Bilateral sertoli-leydig cell tumor of the ovary: A rare case report // Indian Journal of Pathology and Microbiology. – 2009. – Т. 52. – №. 1. – С. 97-99.

20. Strus M. et al. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumour with α -fetoprotein-producing intestinal glandular cells. Clinical case and short review of basic literature // Polish Journal of Pathology. – 2019. – Т. 70. – №. 3. – С. 226-231.

21. Kawatra V. et al. Retiform pattern of Sertoli-Leydig cell tumor of the ovary in a 4-year-old girl //Journal of Obstetrics and Gynaecology Research. – 2009. – Т. 35. – №. 1. – С. 176-179.

22. Choong C. S. et al. Sertoli-Leydig cell tumor of the ovary, a rare cause of precocious puberty in a 12-month-old infant //The Journal of Clinical Endocrinology & Metabolism. – 2002. – Т. 87. – №. 1. – С. 49-56.

23. Bhardwaj S., Banet N., Gaston E. C. Moderately-differentiated Ovarian SertoliLeydig Cell Tumor With a Concurrent Serous Borderline Tumor in a 16-year-old Girl //International Journal of Gynecological Pathology. – 2024. – Т. 43. – №. 2. – С. 140-144.

СЛУЧАЙ ЮВЕНИЛЬНОЙ АНДРОГЕНПРОДУЦИРУЮЩЕЙ ОВАРИАЛЬНОЙ ОПУХОЛИ ИЗ КЛЕТОК СЕРТОЛИ-ЛЕЙДИГА У 16- ЛЕТНЕЙ ПАЦИЕНТКИ

*Сибирская Е.В., Караченцова И.В., Закирова Н.И.,
Никифорова П.О., Кириллова Ю.А., Ленишкова А.Д.*

Резюме. В статье представлен редкий клинический случай андрогенпродуцирующей опухоли яичника из клеток Сертоли-Лейдига у 16-летней пациентки. Такие опухоли составляют менее 0,5% всех новообразований яичников и характеризуется избыточной продукцией андрогенов, что приводит к таким симптомам как гирсутизм, дисфония и аменорея. Диагноз был установлен на основании: жалоб, осмотра, данных лабораторных и ультразвукового исследований. Пациентке была проведена лапароскопическая правосторонняя сальпинго-оофорэктомия, что в последующем привело к снижению уровня тестостерона в динамике. Гистологическое исследование подтвердило диагноз, а именно картину низкодифференцированной опухоли из клеток Сертоли-Лейдига с участками умеренной дифференцировки. В статье мы подчеркиваем редкость данной патологии и акцентируем внимание на мультидисциплинарном подходе к диагностике. Также хотим отметить, что такие опухоли требуют комплексного подхода и дальнейших исследований для разработки более эффективных методов лечения.

Ключевые слова: детская гинекология, клинический случай, опухоли яичников, андрогенпродуцирующая опухоль, опухоль Сертоли-Лейдига, синдром вирилизации, новообразование яичников.