

伴有Leydig细胞增生的卵巢吻合状血管瘤： 12例临床病理研究

Austin McHenry, M.D. and Natalia Buza, M.D.

关键词：吻合状血管瘤；卵巢；间质黄素化；Leydig 细胞增生

(IJGP.2023 Mar.;42(2):167-175)

摘要：吻合状血管瘤是近年来报道的一种血管肿瘤，首先发现于男性泌尿生殖道。此后，该肿瘤被报道于其他多处解剖部位，包括发生于女性生殖道（主要为卵巢）的罕见病例。在此，本文报道了我们机构 15 年间诊断的 12 例卵巢吻合状血管瘤，这也是迄今为止最大宗的病例报告。患者在肿物切除时的年龄为 50~76 岁（中位年龄 62 岁）。3 例患者表现为盆腔肿块，3 例患者经影像学检查发现肿块，其余 6 例是在因其他原因切除的卵巢中偶然被发现。所有的肿瘤均为单侧，位于卵巢门部，呈模糊的分叶状结构，具有窦状血管、内衬缺乏细胞异型性的钉突样血管内皮细胞。9/12 例的血管瘤周围环绕黄素化/Leydig 细胞，细胞核圆形、居中，胞质丰富、嗜酸性。在这 9 例肿瘤中，3 例可见 Reinke 结晶，黄素化细胞的数量与增生血管之间的比例为 2%~30%，伴有黄素化/Leydig 细胞的所有血管瘤的内皮细胞胞质内均可见大量嗜酸性、球状包涵体。3 例不伴有黄素化/Leydig 细胞的血管瘤仅显示血管内病变。尽管此类肿瘤常伴有黄素化/Leydig 细胞，但没有患者因此出现激素相关的临床症状。识别这种罕见的卵巢良性肿瘤类型非常重要，因为它与黄素化/Leydig 细胞增生（多为旺炽性）密切相关，可能会因此被误诊为类固醇细胞肿瘤、Leydig 细胞瘤或者混合性间质血管性肿瘤。

吻合状血管瘤是一种良性血管肿瘤，具有疏松的分叶状结构，由增生的毛细血管大小的薄壁吻合血管组成，内衬单层内皮细胞，细胞核呈钉突样。细胞缺乏异型或具有轻度异型性，核分裂象罕见^[1]。肿瘤常伴发血栓、髓外造血和胶原小球。该肿瘤最初在男性生殖道被报道，主要发生于肾脏、腹膜后脂肪组织和睾丸^[2]。近来也有发生于肝脏、胃肠道、皮肤和女性生殖道的病例报道^[3-8]。多数病例在影像学检查中被偶然发现，表现为密度不均、轻度增强、不能确定为恶性的病变^[9]。肿瘤主要发生于成人^[2]，总体无性别差异。在绝大多数经分子检测的肿瘤中发现了 *GNAQ* 或 *GNA14* 热点突变^[7,10]。

迄今为止，英文文献仅有 18 例卵巢吻合状血管瘤的报道^[3,9,11-15]，最大宗的报道为 6 例^[5]。尽管绝大多数报道的病例为偶然发现，罕见患者由于出现肿块、腹水或者血清 CA-125 升高，导致临床怀疑为恶性肿瘤^[5,12-14]。鉴于该肿瘤罕见且近期才对其有所报道，病理诊断可能具有挑战性。在此，我们报道了 12 例卵巢吻合状血管瘤的详细临床病理特征，尤其强调了相关黄素化/Leydig 细胞的表现，拓展了该类肿瘤的形态学范畴。

材料与方法

本研究通过了耶鲁机构审核委员会的审核。我们检索了本机构 2005~2020 年诊断为卵巢血管肿瘤的病例。12 例肿瘤符合前言所述的吻合状血管瘤的形态学标准，发生于卵巢以外的女性生殖器官的肿瘤被排除。作者复阅了肿瘤所有的 HE 切片及可用的免疫组织化学染色切片，并详细记录了如下的形态学参数：肿瘤大小、肿瘤位于卵巢内的部位、黄素化间质细胞的存在情况以及相对数量（占肿瘤体积的%）、是否出现了胞质内 Reinke 结晶、内皮细胞内的胶原小球、中等管径的血管、血栓及透明变性、髓外造血、肿瘤内的囊性变。

From the Department of Pathology, Yale School of Medicine, New Haven, Connecticut.

The authors declare no conflict of interest.

Address correspondence to Natalia Buza, MD, Pathology, Yale University School of Medicine, 310 Cedar Street LH 108, PO Box 208023, New Haven, CT 06520-8023. E-mail: natalia.buza@yale.edu.

表1. 卵巢吻合状血管瘤的临床特征 (n=12)

#	年龄 (岁)	侧别	术式; 卵巢切除指征	手术时其他诊断	孕产史	BMI (kg/m ²)	男性化	临床表现
1	55	右	RO; 右侧卵巢肿块	无	G0P0; PM	29.3	无	包块
2	62	右	TH BSO; 双侧附件肿块	左侧卵巢浆液性囊腺瘤	G2P2; PM	28.5	无	包块
3	67	左	BSO; <i>BRACA2</i> 突变	右侧偶然发现的显微镜下卵巢甲状腺肿 (1 mm)	G4P3; PM	26.5	无	偶然发现
4	76	右	TH BSO; 原发性腹膜癌	无	G3P3; PM	21.27	无	偶然发现
5	58	左	BSO; 卵巢囊肿, 绝经后阴道出血	左侧卵巢浆液性囊腺瘤; 子宫内膜异位症	G2P2; PM	28.5	无	偶然发现
6	53	右	RSO; 盆腔不适, 乳腺癌病史	右侧腹膜囊肿 (0.5 cm)	GxPx; PM	24.2	无	包块
7	73	右	TH BSO; 浆液性子宫内膜癌	右侧卵巢浆液性囊腺瘤 (2.5 cm); 子宫内膜浆液性癌	G3P3; PM	22.6	无	偶然发现
8	65	左	TH BSO; 右侧盆腔肿块	右侧卵巢纤维卵泡膜细胞瘤 (15 cm)	GxPx; PM	25.75	无	偶然发现
9	50	U	BO; <i>PLAH2</i> 突变; 乳腺癌病史	无	G2P2; PM	48	无	偶然发现
10	69	左	TH BSO; 子宫内膜样癌	浆液性囊腺纤维瘤; 子宫内膜异位症; 子宫内膜样癌	G0P0; PM	43.5	无	偶然发现
11	63	右	TH BSO; 子宫内膜非典型增生 (复杂型)	子宫内膜非典型增生 (复杂型)	G1P0; PM	39	无	偶然发现
12	55	左	TH BSO; 子宫内膜样癌	子宫内膜样癌	G0P0; PM	23.82	无	偶然发现

#代表病例号; AH: 吻合状血管瘤; BMI: 体重指数; BO: 双侧卵巢切除术; BSO: 双侧输卵管卵巢切除术; PM: 绝经后; RO: 右侧卵巢切除术; RSO: 右侧输卵管卵巢切除术; TH: 全子宫切除术; TH BSO: 全子宫+双侧输卵管卵巢切除术; U: 单侧, 未注明侧别。

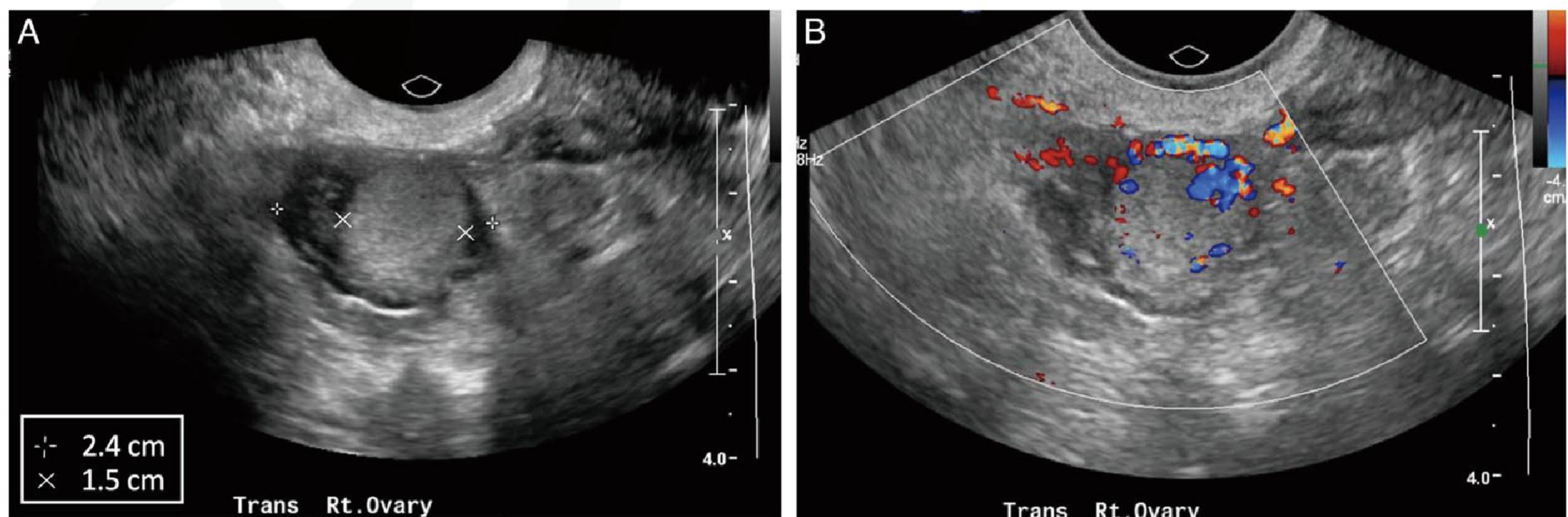


图1. 一例卵巢吻合状血管瘤的盆腔多普勒超声检查 (病例 1): 在 2.4cm 的异常右侧卵巢内, 可见 1.5cm 的圆形回声结节 (A) 显示中度血流信号 (B)。

表2. 吻合状血管瘤的组织病理学特征 (n=12)

#	肿瘤大小 (mm)	部位	大体形态	黄素化/ Leydig 细胞占肿瘤体积的百分比 (%)	Reinke 结晶	内皮细胞胶原小球	中等管径的营养血管	髓外造血	血栓	囊性变	血管壁玻璃样变
1	12	门部	出血区	有 (<5%)	有	有	有	无	有	有	有
2	10	门部	红褐色, 胶状腔隙	有 (10%)	有	有	有	无	有	有	有
3	5	门部	不明显	有 (10%)	无	有	有	无	有	无	有
4	7	门部	不明显	有 (20%)	无	有	有	无	有	无	有
5	8	门部	不明显	有 (30%)	无	有	有	无	有	无	有
6	6	门部	不明显	有 (10%)	无	有	有	无	有	无	有
7	4	门部	不明显	有 (<5%)	有	有	有	无	有	无	有
8	10	门部	出血区	有 (15%)	无	有	有	无	有	无	有
9	9	门部	出血区	有 (2%)	无	有	有	无	有	无	有
10	6	门部, 血管内	不明显	无	无	无	无	有	有	无	有
11	3	门部, 血管内	不明显	无	无	无	有	无	无	无	有
12	2	门部, 血管内	不明显	无	无	无	无	无	无	无	有

#代表病例号。

作为常规诊断检查一部分, 部分病例进行了免疫组织化学染色, 包括以下抗体: CD31 (克隆号 JC70A, DAKO, Carpinteria, CA)、inhibin (克隆号 R1, Ventana, Tucson, AZ)、VIII 因子 (兔多克隆, DAKO, Carpinteria, CA)、SF-1 (克隆号 N1665, Thermo Fisher, Waltham, MA)。有关肿瘤大体形态的信息来自病理报告, 临床资料包括影像学检查通过搜集病历记录获得。

结果

临床所见

临床资料详见表 1。患者肿物切除时的年龄为 50~76 岁 (中位年龄 62 岁)。所有患者均为绝经后, 孕产史为未怀孕到 4 胎。体重指数 (BMI) 具有统计学差异, 范围 21.3~48 (中位数 28) kg/m²。患者均未出现男性化体征及性腺激素水平的改变。2 例患者 (#9 和 #12) 接受了术前激素评估, 显示绝经状态下正常的雌激素、促卵泡激素及促黄体激素水平。在 12 例肿瘤中, 3 例经影像学检查发现 (#1、#2 和 #5), 3 例呈现盆腔包块的症状 (#1、#2 和 #6), 其余卵巢吻合状血管瘤均是在卵巢切除标本中被偶然发现, 所涉及的卵巢切除术指征包括胚系 *BRCA2* 和 *PALB2* 基因突变携带者、对侧良性卵

巢肿瘤、子宫内膜异位症、绝经后阴道出血、子宫内膜增生、子宫内膜癌和原发性腹膜癌。所有肿瘤均为单侧。

影像学检查

3 例卵巢吻合状血管瘤通过影像学检查发现, 其中 1 例是经阴式和腹部 B 超检查被发现, 表现为 1.5cm 大小的圆形强回声结节, 病变内可见中等血供分布 (#1, 图 1); 1 例是经腹部及盆腔增强 CT 检查中被发现, 表现为囊性附件肿块 (#2); 另外 1 例在阴式 B 超下呈现血供增加的不确定实性强回声病灶 (#5)。

病理检查

病理检查结果总结详见表 2。4/12 (33%) 大体检查能够识别肿瘤, 其中 2 例也在影像学检查中被发现 (#1 和 #2)。大体改变包括边界欠清、出血灶、红褐色外观、胶样腔隙。所有的卵巢吻合状血管瘤主要位于卵巢门部 (图 2), 体积较大的肿瘤部分延伸至邻近的髓质。3 例肿瘤完全位于血管内, 未累及卵巢实质 (图 3)。病变大小为 2~12mm, 平均 6.8 mm。组织学上, 所有的肿瘤在低倍镜下具有模糊的分叶状结构, 局灶血管壁透明变性, 内皮细胞呈单层、钉突样, 缺乏异

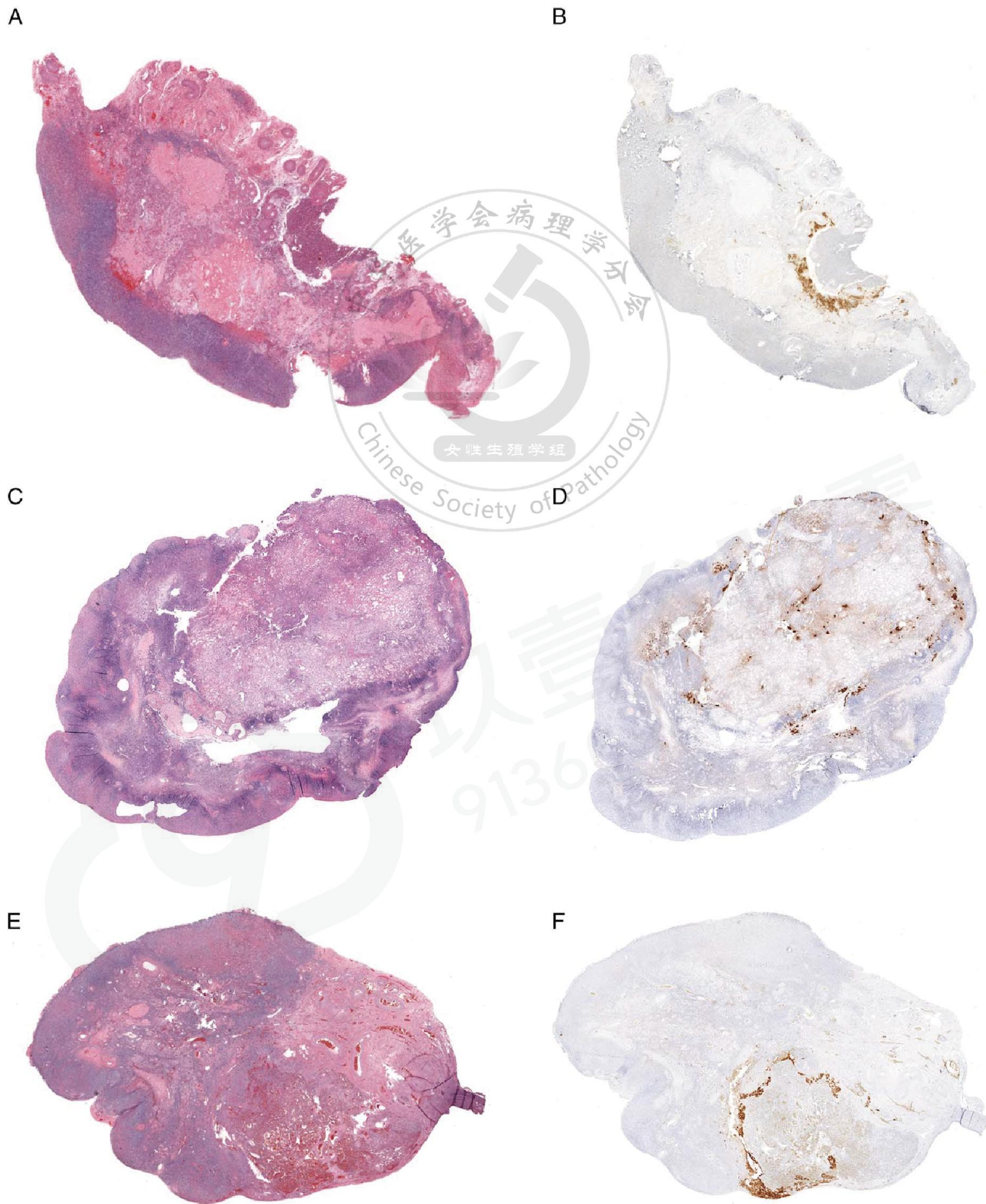


图2.全视野数字切片显示典型的卵巢吻合状血管瘤 (A、B: 病例 4; C、D: 病例1; E、F: 病例 6) 位于卵巢门部, 具有 inhibin 强阳性表达的黄素化/ Leydig 细胞 (B、D、F)。

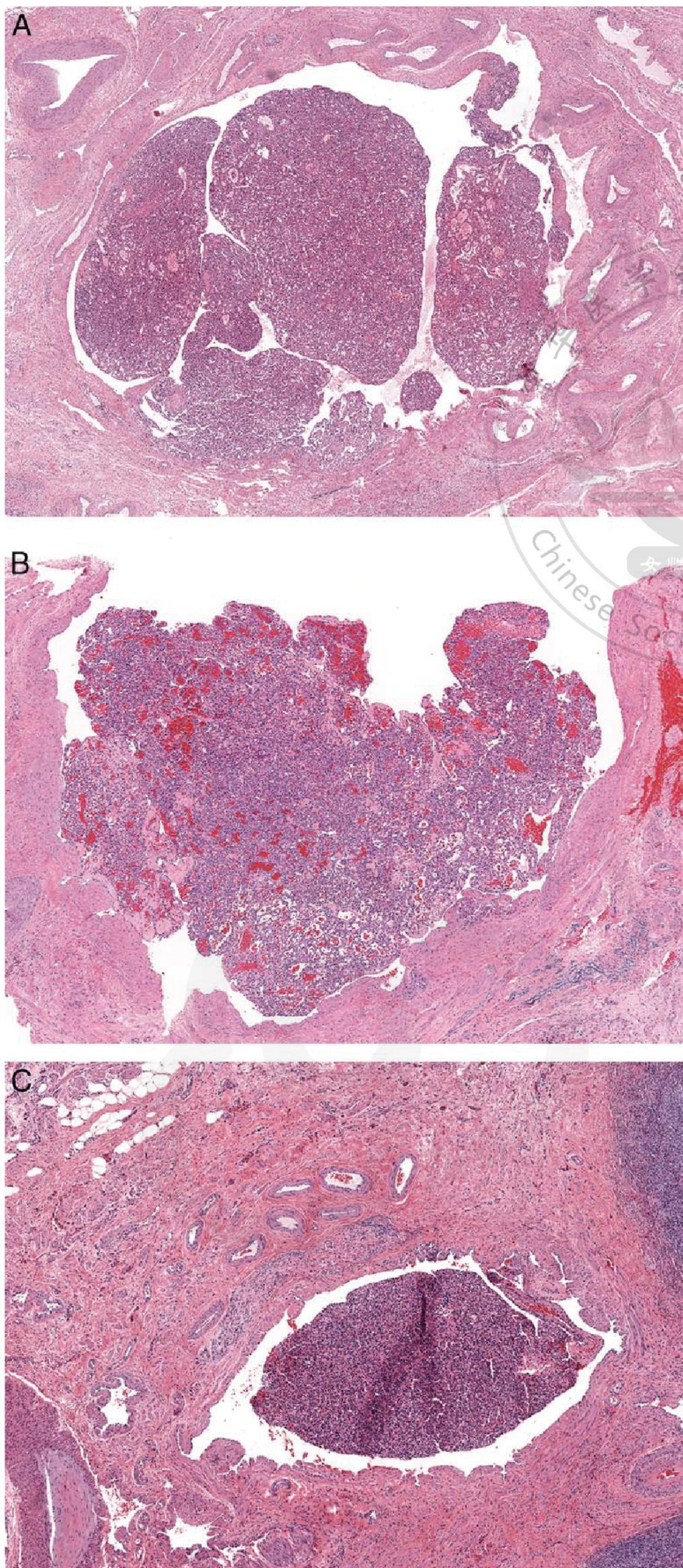


图3.卵巢血管内的吻合状血管瘤，周围不伴有黄素化/Leydig细胞（A、B、C依次为病例10、11和12）

型或仅有轻度异型性，无核分裂象（图4）。除2例肿瘤外，其余肿瘤均含有中等大小的营养血管。8/12（66%）的肿瘤显示镜下出血。在无伴发出血的4例肿瘤中，3例肿瘤完全位于血管内（#10-12）（图2）。除2例肿瘤外，其余肿瘤内均出现了大量的小血管内血栓。2例体积最大的肿瘤（#1和#2）发生了囊性变（定义至少为0.5cm的空腔，其内充满或不含囊液）。仅有1例肿瘤（#10）出现了明确的髓外造血。9/12（75%）的肿瘤（均为非血管内肿瘤）可见类似红细胞碎片的内皮细胞胶原小球（小且多发）和肿瘤周围环绕的黄素化间质细胞。黄素化间质细胞免疫组织化学染色SF1（1例）和inhibin（3例）均呈现阳性着色（图2）。4例肿瘤进行了内皮细胞标志物（CD31和VIII因子）的免疫组织化学染色且均显示阳性结果（2例肿瘤CD31和VIII因子均阳性；1例CD31阳性；1例VIII因子阳性）。肿瘤边缘黄素化区域占血管瘤体积的百分比为2%~30%不等。3/9伴有黄素化细胞的肿瘤可见明确的胞质内Reinke结晶，符合增生的Leydig细胞（图4F）。1例（#2）肿瘤中Leydig细胞成分尤为显著，导致冰冻诊断倾向于Leydig细胞瘤。同侧卵巢实质内与吻合状血管瘤无相关性的病变包括：异位蜕膜组织、浆液性囊腺瘤、子宫内膜异位症、浆液性囊腺纤维瘤和间质增生。

讨论

女性生殖道尤其是卵巢的血管肿瘤很少见。吻合状血管瘤于2009年首次被报道^[2]，后续的一系列报道显示13%的肿瘤发生于卵巢^[9]。卵巢吻合状血管瘤的独特之处是常常伴随显著的间质黄素化，既往文献报道有12/18（67%）的肿瘤出现这一特征（表3），我们的系列报告也有75%（9/12）的肿瘤呈现类似的黄素化/Leydig细胞^[3,5,11-19]。在我们的报道之前，有3例肿瘤报道强调了Leydig细胞或门细胞的增生^[5,14,15]。尽管血管增生与周围黄素化/Leydig细胞的比例在个案报道中有显著差异，但既往研究未提及上述成分的数量或比例。我们评估了本研究中所有肿瘤中黄素化/Leydig细胞占整个肿瘤体积的百分比，范围在2%~30%之间不等。

伴有显著黄素化/Leydig细胞增生的肿瘤可能会被误诊为卵巢间质肿瘤（例如类固醇细胞瘤或Leydig细胞瘤）。事实上，在我们的研究中，1例吻合状血管瘤最初在术中冰冻诊断时，是倾向于Leydig细胞瘤。有趣的是，我们报道的所有患者中黄素化/Leydig细胞增生缺乏显著的激素表现。解释这一现象发病机制的理论包括黄素化导致血管瘤的形成和血管瘤引

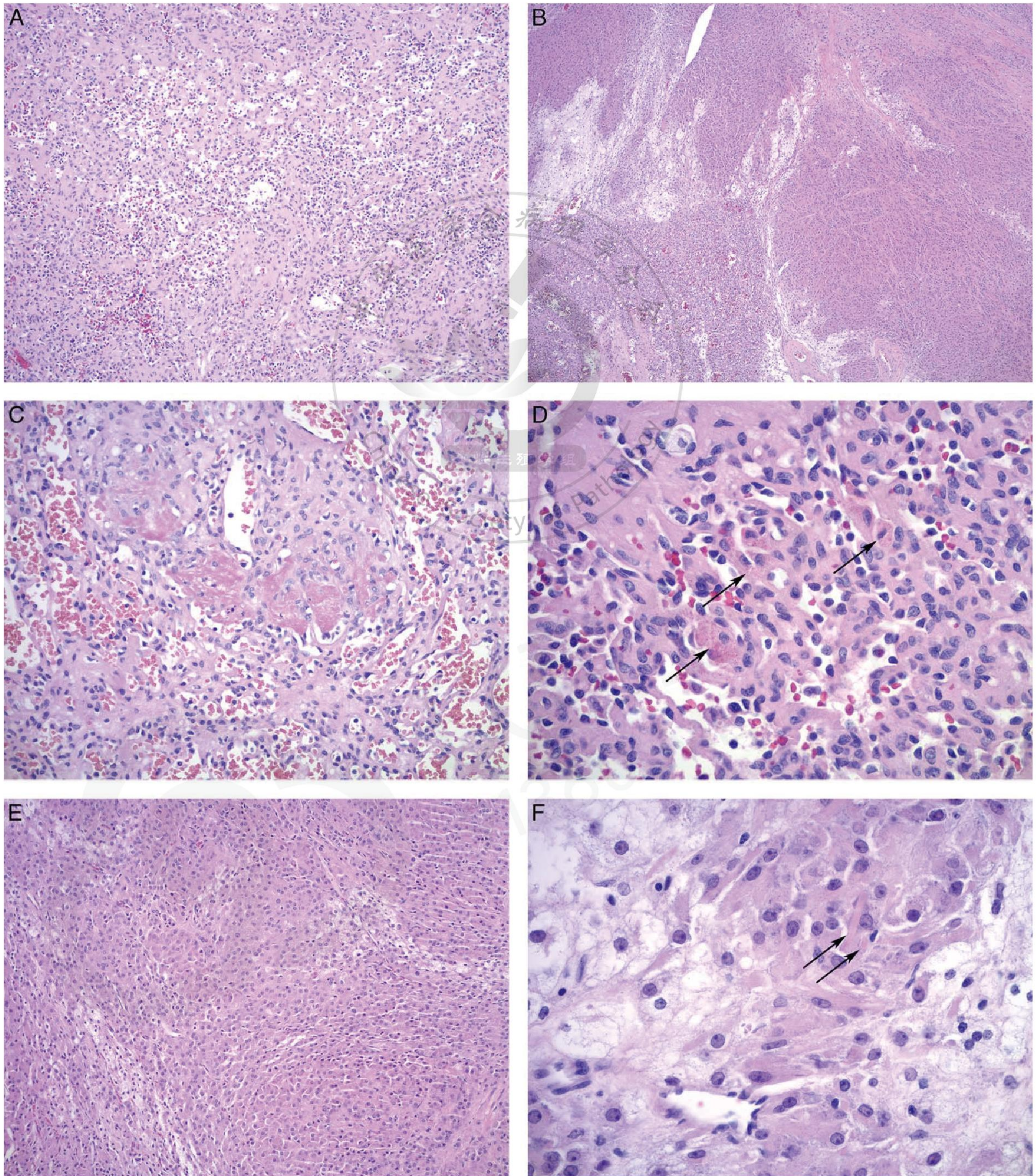


图4.卵巢吻合状血管瘤的形态学特征（病例 2）。相互吻合的小至中等大小的血管（A）伴间质 Leydig 细胞增生（B，右图）。内皮细胞呈现轻度核异型和散在分布的钉突样细胞（C），可见纤维素性血栓（C）和内皮细胞胶原小球（D，箭头所示）。血管瘤周围环绕着大量增生的 Leydig 细胞（E），胞质内可见 Reinke 结晶（F，箭头所示）。

表3. 英文文献中已报道的卵巢吻合状血管瘤病例 (n=18)

#	病例来源	年龄 (岁)	部位	大小 (mm)	间质黄素化	Leydig 细胞增生	临床表现
1	Metodiev et al. ^[11]	70	皮质	7	是	NA	NA
2	Kryvenko et al. ^[3]	70	皮质	2	否	NA	偶然发现
3	Kryvenko et al. ^[3]	49	皮质	1	否	NA	偶然发现
4	Kryvenko et al. ^[3]	77	皮质/髓质	11	是	NA	偶然发现
5	O' Neill et al. ^[9]	NA	NA	NA	NA	NA	NA
6	O' Neill et al. ^[9]	NA	NA	NA	NA	NA	NA
7	O' Neill et al. ^[9]	NA	NA	NA	NA	NA	NA
8	O' Neill et al. ^[9]	NA	NA	NA	NA	NA	NA
9	Dundr et al. ^[5]	66	NA	5	是, 融合性, 外周分布	1/6 病例出现	偶然发现
10	Dundr et al. ^[5]	43	NA	13	是, 罕见, 小簇		偶然发现
11	Dundr et al. ^[5]	69	NA	15	是, 融合性, 外周分布		偶然发现
12	Dundr et al. ^[5]	81	NA	35	是, 融合性, 外周分布		偶然发现
13	Dundr et al. ^[5]	68	NA	35	是, 融合性, 以外周分布为主		腹水, CA125 升高
14	Dundr et al. ^[5]	69	NA	12	是, 多发小结节, 外周分布		肿块
15	Gunduz et al. ^[12]	62	NA	90	是	否	影像学偶然发现肿块, CA125 升高
16	Subbarayan et al. ^[13]	50	NA	30	是	否	腹水
17	Rezk et al. ^[14]	60	NA	65	是	是	腹水, CA125 升高
18	Stewart and Salfinger ^[15]	48	髓质	8	是	是	偶然发现

NA表示未提供。

黄素化^[16,18]。根据第一种理论, 由于雌激素的生长刺激作用, 由间质黄素化导致的高雌激素状态会刺激血管瘤的生长。然而, 多项研究表明吻合状血管瘤的内皮细胞缺乏雌激素和孕激素受体^[5,20-22]。相反, 血管肿瘤更有可能类似于增大的卵泡, 挤压周围卵巢实质, 进而导致黄素化细胞的发育。在我们的系列报道中, 3 例完全位于血管内的肿瘤 (#10-12) 缺乏黄素化 / Leydig 细胞, 或许也能够支持这一假设。

本研究中 12 例肿瘤均位于卵巢门部, 其中体积较大的肿瘤部分延伸至邻近的卵巢髓质。既往报道的病例中, 3 例肿瘤位于卵巢皮质, 1 例位于皮质/髓质, 1 例位于髓质, 其余 13 例卵巢吻合状血管瘤的具体发生部位未予报道^[3,5,9,11-15]。正常生理状态下卵巢门部和髓质富于血管, 该现象在绝经后妇女的卵巢中尤为明显, 可能被误判为血管瘤。不同于正常卵巢的厚壁血管 (通常伴有透明变性), 吻合状血管瘤由毛细血管大小的

薄壁血管增生组成。此外, 正常的卵巢门部也可见多少不等的 Leydig 细胞聚集, 也可以向邻近的髓质区延伸。尽管细胞质内 Reinke 结晶有助于 Leydig / 门细胞的识别, 但 Reinke 结晶较为罕见, 在一些病例中不能被观察到。既往卵巢吻合状血管瘤的病例报道和系列报道常将黄素化细胞的出现称之为“间质黄素化”, 事实上该类肿瘤没有被特指起源于卵巢门部。鉴于本研究中所有的肿瘤均发生于卵巢门部, 我们可以推测黄素化细胞可能是 Leydig 细胞, 尽管所有肿瘤 (除 3 例外) 均缺乏明确的 Reinke 结晶。

吻合状血管瘤的鉴别诊断也包括了其他类型的血管肿瘤 (毛细血管瘤、海绵状血管瘤、血管内皮瘤、上皮样血管瘤和血管肉瘤) 以及非肿瘤性血管增生。总体来说, 卵巢的血管肿瘤非常罕见, 文献中仅为个案报道或小宗病例报道。海绵状血管瘤 (窦状) 可形成相互吻合的窦隙, 但窦隙通常是

开放的。上皮样血管瘤由结构良好的血管组成，内皮细胞肿胀、呈组织细胞样，胞质丰富、嗜酸性。恶性上皮样血管内皮瘤同样是由上皮样内皮细胞组成，但该肿瘤具有特征性的黏液透明变的间质^[23-25]。卵巢原发性血管肉瘤患者的年龄范围为19~77岁（平均37岁），肿瘤大小3.5~23cm^[26,27]。与吻合状血管瘤不同，血管肉瘤具有浸润性的边界、程度不等的细胞核异型（至少局灶显著异型），核分裂象易见，内皮细胞呈复层排列，血管肉瘤通常存在多种组织学结构模式，包括上皮样肿瘤细胞的实性区域和吻合的血管网混合存在。尽管也有报道吻合状血管瘤局灶坏死，但血管肉瘤坏死更为常见^[2]。有趣的是，卵巢血管肉瘤也罕见发生于成熟性囊性畸胎瘤中^[28,29]。目前尚无报道间质黄素化或Leydig细胞增生与卵巢血管肉瘤相关。

虽然吻合状血管瘤不太可能与传统的实性血管球瘤相混淆，但偶尔可能类似于球静脉畸形（球血管瘤），后者特征性表现为海绵状血管瘤样血管结构被小簇状的血管球瘤细胞围绕。血管球瘤细胞的识别可以基于其形态学（形态一致的圆形上皮样细胞，胞核居中，染色质细腻）和免疫表型（SMA、MSA和h-caldesmon通常阳性）^[30]。仅有少数卵巢血管球瘤的报道，肿瘤最大直径从镜下可见至2.5cm不等，其中1例起源于卵巢成熟性畸胎瘤^[31-33]。一篇报道描述了1例4cm大小的卵巢血管球瘤，因术中大量出血，临床上误判为粒层细胞瘤，镜下显示具有与吻合状血管瘤非常相似的形态学^[34]。

此外，最近有关于卵巢乳头状血管内皮增生（Masson瘤）的报道^[35]，也需要将其纳入鉴别诊断中，尤其是我们报道的病例中有3例肿瘤完全位于血管内。乳头状血管内皮增生被认为是一种反应性病变，最常发生于头颈部、躯干和肢体的皮肤、皮下组织或黏膜。通常发生于伴有机化性血栓的血管内，由增生的乳头状结构和纤维轴心构成，被覆形态温和的内皮细胞，缺乏细胞异型性、核分裂象和坏死。相反，我们报道的病例中没有一例肿瘤与机化性血栓相关，仅观察到肿瘤内的微血栓，缺乏乳头状结构。

在本研究中，临床发现仅限于罕见的肿块效应所致的盆腔症状，而大多数肿瘤为偶然发现。我们报道的病例，肿瘤从镜下可见到1.2cm不等，既往文献报道肿瘤最大为9cm（尽管存在囊性成分）^[12]。先前的一些文献报道卵巢吻合状血管瘤罕见关联腹水、血清CA-125升高^[5,12,14]，类似于卵巢上皮性恶性

肿瘤，但在我们的病例中未观察到这些现象。

综上所述，我们报道了迄今为止最大宗的卵巢吻合状血管瘤。我们的报道进一步拓展了对这种罕见肿瘤的形态学和临床上的认识。病理医生有必要提高对该肿瘤的形态学认识，避免误诊。

参考文献

1. Montgomery E, Umetsu SE. WHO Classification of Tumours Editorial Board. *Anastomosing haemangioma. Soft Tissue and Bone Tumours WHO Classification of Tumors, Vol 3*. Lyon, France: International Agency for Research on Cancer; 2020:150-1.
2. Montgomery E, Epstein JI. Anastomosing hemangioma of the genitourinary tract: a lesion mimicking angiosarcoma. *Am J Surg Pathol* 2009;33:1364-9.
3. Kryvenko ON, Gupta NS, Meier FA, et al. Anastomosing hemangioma of the genitourinary system: eight cases in the kidney and ovary with immunohistochemical and ultrastructural analysis. *Am J Clin Pathol* 2011;136:450-7.
4. Lin J, Bigge J, Ulbright TM, et al. Anastomosing hemangioma of the liver and gastrointestinal tract: an unusual variant histologically mimicking angiosarcoma. *Am J Surg Pathol* 2013;37:1761-5.
5. Dunder P, Nemejcova K, Lao J, et al. Anastomosing hemangioma of the ovary: a clinicopathological study of six cases with stromal luteinization. *Pathol Oncol Res* 2017;23:717-22.
6. John I, Folpe AL. Anastomosing hemangiomas arising in unusual locations: a clinicopathologic study of 17 soft tissue cases showing a predilection for the paraspinal region. *Am J Surg Pathol* 2016;40:1084-9.
7. Joseph NM, Brunt EM, Marginean C, et al. Frequent GNAQ and GNA14 mutations in hepatic small vessel neoplasm. *Am J Surg Pathol* 2018;42:1201-7.
8. Tran TAN, Linos K, Carlson JA, et al. A primary cutaneous vascular neoplasm with histologic features of anastomosing hemangioma. *J Cutan*

- Pathol* 2019;46:353–7.
9. O' Neill AC, Craig JW, Silverman SG, et al. Anastomosing hemangiomas: locations of occurrence, imaging features, and diagnosis with percutaneous biopsy. *Abdom Radiol (NY)* 2016;41: 1325–32.
 10. Bean GR, Joseph NM, Folpe AL, et al. Recurrent GNA14 mutations in anastomosing haemangiomas. *Histopathology* 2018;73:354–7.
 11. Metodiev D, Ivanova V, Omainikova B, et al. Ovarian anastomosing hemangioma with stromal luteinization: a case report. *Akush Ginekol (Sofia)* 2015;54:58–61.
 12. Gunduz M, Hurdogan O, Onder S, et al. Cystic anastomosing hemangioma of the ovary: a case report with immunohistochemical and ultrastructural analysis. *Int J Surg Pathol* 2019;27:437–40.
 13. Subbarayan D, Devaraji A, Senthilnayagam B, et al. Anastomosing hemangioma of the ovary clinically masquerading as epithelial malignancy: a rare case report. *J Midlife Health* 2019;10:48–50.
 14. Rezk A, Richards S, Patricia Castillo R, et al. Anastomosing hemangioma of the ovary mimics metastatic ovarian cancer. *Gynecol Oncol Rep* 2020;34:100647.
 15. Stewart CJR, Salfinger SG. Anastomosing haemangioma of the ovary with hilus cell hyperplasia. *Pathology* 2020;52:392–4.
 16. Anand MS, Shetty S, Mysorekar VV, et al. Ovarian hemangioma with stromal luteinization and HCG-producing mononucleate and multinucleate cells of uncertain histogenesis: a rare co-existence with therapeutic dilemma. *Indian J Pathol Microbiol* 2012;55:509–12.
 17. Miliaras D, Papaemmanouil S, Blatzas G. Ovarian capillary hemangioma and stromal luteinization: a case study with hormonal receptor evaluation. *Eur J Gynaecol Oncol* 2001;22:369–71.
 18. Savargaonkar PR, Wells S, Graham I, et al. Ovarian haemangiomas and stromal luteinization. *Histopathology* 1994;25:185–8.
 19. Yamawaki T, Hirai Y, Takeshima N, et al. Ovarian hemangioma associated with concomitant stromal luteinization and ascites. *Gynecol Oncol* 1996;61:438–41.
 20. Gücer F, Ozyilmaz F, Balkanli-Kaplan P, et al. Ovarian hemangioma presenting with hyperandrogenism and endometrial cancer: a case report. *Gynecol Oncol* 2004;94:821–4.
 21. RP M, Trumbull M. Hemangioma of the ovary with ascites. *Miss Doct* 1955;32:271–4.
 22. Uppal S, Heller DS, Majmudar B. Ovarian hemangioma report of three cases and review of the literature. *Arch Gynecol Obstet* 2004;270:1–5.
 23. Rubin BP, Deyrup AT, Doyle LA. WHO Classification of Tumours Editorial Board. Epithelioid haemangioendothelioma. *Soft Tissue and Bone Tumours WHO Classification of Tumors, Vol 3*. Lyon, France: International Agency for Research on Cancer; 2020:172–5.
 24. Suster S, Moran CA, Koss MN. Epithelioid hemangioendothelioma of the anterior mediastinum. Clinicopathologic, immunohistochemical, and ultrastructural analysis of 12 cases. *Am J Surg Pathol* 1994;18:871–81.
 25. Mentzel T, Beham A, Calonje E, et al. Epithelioid hemangioendothelioma of skin and soft tissues: clinicopathologic and immunohistochemical study of 30 cases. *Am J Surg Pathol* 1997;21:363–74.
 26. Nucci MR, Krausz T, Lifschitz-Mercer B, et al. Angiosarcoma of the ovary: clinicopathologic and immunohistochemical analysis of four cases with a broad morphologic spectrum. *Am J Surg Pathol* 1998;22:620–30.
 27. Kruse AJ, Sep S, Slangen BF, et al. Angiosarcomas of primary gynecologic origin: a clinicopathologic review and quantitative analysis of survival. *Int J Gynecol Cancer* 2014;24:4–12.
 28. Contreras AL, Malpica A. Angiosarcoma arising in mature cystic teratoma of the ovary: a case report

- and review of the literature. *Int J Gynecol Pathol* 2009;28:453-7.
29. Kudela E, Nachajova M, Biringer K, et al. Bilateral ovarian angiosarcoma arising from the mature cystic teratomas—a case report and review of the literature. *Int J Surg Case Rep* 2018;42:90-3.
30. Mravic M, LaChaud G, Nguyen A, et al. Clinical and histopathological diagnosis of glomus tumor: an institutional experience of 138 cases. *Int J Surg Pathol* 2015;23:181-8.
31. Silver SA, Tavassoli FA. Glomus tumor arising in a mature teratoma of the ovary: report of a case simulating a metastasis from cervical squamous carcinoma. *Arch Pathol Lab Med* 2000;124:1373-5.
32. Gokten N, Peterdy G, Philpott T, et al. Glomus tumor of the ovary: report of a case with immunohistochemical and ultrastructural observations. *Int J Gynecol Pathol* 2001;20:390-4.
33. Maeda D, Takazawa Y, Oda K, et al. Glomus tumor of the ovary: a case report. *Int J Surg Pathol* 2010;18:557-60.
34. Slone SP, Moore GD, Parker LP, et al. Glomus tumor of the ovary masquerading as granulosa cell tumor: case report. *Int J Gynecol Pathol* 2010;29:24-6.
35. Sherring K, Foot O, Barton DP, et al. Ovarian extravascular papillary endothelial hyperplasia (masson tumor) mimicking a primary gynecologic malignancy. *Int J Gynecol Pathol* 2021;40: 286-9.