

## · 临床论著 ·

## 胆囊腺肌增生症 459 例报告\*

何 潇<sup>①</sup> 徐 智 崔 龙 王 港\*\*

(北京大学第三医院普通外科, 北京 100191)

【摘要】 目的 探讨胆囊腺肌增生症 (adenomyomatosis of gallbladder, ADM) 的流行病学特征、临床表现、诊断及治疗方法, 为临床诊断和治疗 ADM 提供指导。 方法 检索我院 2000 年 1 月 1 日 ~ 2015 年 12 月 31 日病理数据库 14 299 例胆囊切除术的临床资料, 选取经病理证实为 ADM 459 例, 对其流行病学特征、临床表现、各种影像学检查的诊断率、手术方式、病理等进行回顾性分析。 结果 419 例 (91.3%) 行腹腔镜胆囊切除术, 40 例 (8.7%) 腹腔镜中转开腹或开腹胆囊切除术。ADM 在胆囊切除标本中发现率为 3.2%。427 例 (93.0%) 合并胆囊炎, 284 例 (61.9%) 合并胆囊结石, 54 例 (11.8%) 合并胆固醇性息肉或胆固醇沉积症, 12 例 (2.6%) 合并胆囊腺瘤, 2 例 (0.4%) 合并胆囊癌。超声、增强 CT/MRCP 或增强 MRI 术前诊断率分别为 24.5% (96/392), 40.7% (55/135), 39.6% (108/273)。 结论 ADM 多发于 50 ~ 59 岁人群, 常合并胆囊炎和胆囊结石。术前超声联合增强 CT/MRCP 或增强 MRI 的诊断率较单纯超声检查高。腹腔镜胆囊切除术仍然是治疗 ADM 的主要治疗方式。

【关键词】 胆囊腺肌增生症; 流行病学特征; 胆囊切除术

文献标识: A 文章编号: 1009 - 6604 (2018) 11 - 0961 - 04

doi: 10.3969/j.issn.1009-6604.2018.11.001

**Adenomyomatosis of Gallbladder: Report of 459 Cases** He Xiao, Xu Zhi\*, Cui Long\*, et al. \* Department of General Surgery, Peking University Third Hospital, Beijing 100191, China

Corresponding author: Wang Gang, E-mail: wgchm@sina.com

【Abstract】 **Objective** To study the epidemiological features, clinical features, diagnosis and treatment of adenomyomatosis of gallbladder and explore the individualized and appropriate treatment strategy. **Methods** From January 1, 2000 to December 31, 2015, a total of 14 299 patients underwent cholecystectomy in our hospital. Among them, 459 patients pathologically diagnosed as having adenomyomatosis of the gallbladder were selected for this study. The epidemiological features, diagnostic rate of different imaging examinations, surgical treatment, and pathological findings were retrospectively analyzed. **Results** Laparoscopic cholecystectomy (LC) was performed in 419 (91.3%) patients, and LC converted to open cholecystectomy (OC) or OC was performed in 40 patients (8.7%). Adenomyomatosis of gallbladder was found in 3.2% of cholecystectomy specimens. A total of 427 cases (93.0%) were accompanied with cholecystitis, 284 cases (61.9%) were accompanied with gallbladder stones, 54 cases (11.8%) were accompanied with cholesterol polyp or deposition, 12 cases (2.6%) were accompanied with gallbladder adenoma, and 2 cases (0.4%) were accompanied with carcinoma of gallbladder. The diagnostic rate of ultrasonography, contrast-enhanced computed tomography, MRCP or contrast-enhanced MRI was 24.5% (96/392), 40.7% (55/135), 39.6% (108/273), respectively. **Conclusions** Adenomyomatosis of the gallbladder is mainly found in people aged 50 - 59 years old. It is always accompanied with cholecystitis and gallbladder stones. Ultrasonography combined with contrast-enhanced CT, MRCP or contrast-enhanced MRI has a higher diagnostic rate than ultrasonography alone. Currently LC is the main procedure for the treatment of adenomyomatosis of the gallbladder.

【Key Words】 Adenomyomatosis of gallbladder; Epidemiological feature; Cholecystectomy

胆囊腺肌增生症 (adenomyomatosis of gallbladder, ADM) 是胆囊的一种非炎症性、非肿瘤性增生性疾病<sup>[1]</sup>, 病因及发病机制目前尚不明确。

ADM 无特异性临床表现及实验室检查, 术前诊断率不高。20 世纪 80 年代以来 ADM 陆续被报道有恶变倾向, 但 ADM 与胆囊癌的相关性仍存在争议<sup>[2]</sup>,

\* 基金项目: 北京大学第三医院重点项目 (BYSY201207)

\*\* 通讯作者, E-mail: wgchm@sina.com

① (常州市第二人民医院乳腺外科, 常州 213003)

目前,对于 ADM 的治疗和干预尚未达成统一意见。关于 ADM 的个案报道居多,大规模的临床病例分析较少。本研究对我院 2000 年 1 月 1 日~2015 年 12 月 31 日 459 例病理证实为 ADM 的临床资料进行回顾性研究,旨在为临床诊断和治疗 ADM 提供指导。

## 1 临床资料与方法

### 1.1 一般资料

我院 2000 年 1 月 1 日~2015 年 12 月 31 日共行 14 299 例胆囊切除术,其中 459 例经病理证实为 ADM,ADM 病例数大致呈逐年上升趋势(图 1)。男 211 例,女 248 例,男:女为 1:1.18。年龄 16~97 岁,(52.5±14.1)岁,高发年龄为 40~69 岁,以 50~59 岁为著(图 2)。有症状 357 例(77.8%),主要表现为右上腹部疼痛不适,伴或不伴后背放射痛,伴恶心、呕吐、消化不良等。有体征 82 例(17.9%),主要表现为右上腹部及剑突下压痛、Murphy 征阳性、黄疸等。

### 1.2 方法

应用电子病案系统回顾性采集病理诊断为 ADM 患者的病案资料,包括患者性别、年龄、症状、体征、影像学检查(超声、增强 CT、MRCP 或增强 MRI)、手术方式,是否合并胆囊炎、胆囊结石、胆固醇沉积症(含胆固醇性息肉)、胆囊腺瘤、胆囊癌,以及形态学分型。

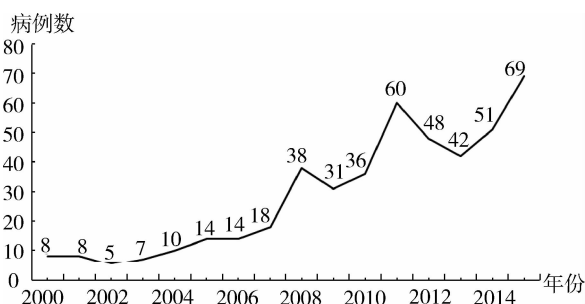


图 1 459 例 ADM 的年份分布情况

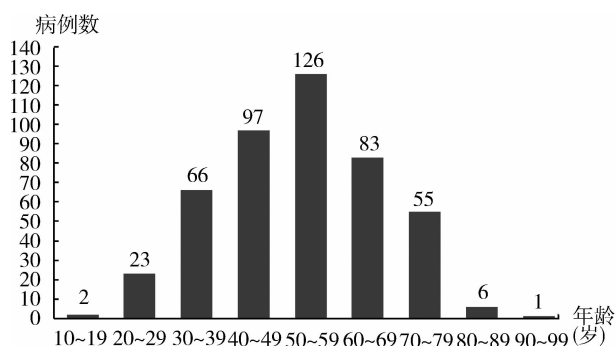


图 2 459 例 ADM 的年龄分布情况

## 2 结果

### 2.1 影像学检查及诊断

392 例行超声检查,ADM 在超声上表现为胆囊壁增厚,胆囊壁内无回声小囊状结构,即 R-A 窦,当 R-A 窦内合并结石或结晶时表现为点状强回声后方伴彗星尾征,诊断率为 24.5% (96/392)。135 例行增强 CT 检查,ADM 在 CT 上表现为胆囊壁增厚,增厚的胆囊壁内见小囊状低密度无强化区,即 R-A 窦,诊断率为 40.7% (55/135)。273 例行 MRCP 或增强 MRI 检查,ADM 在 T2 加权相上表现为增厚的胆囊壁及胆囊壁内小囊状高信号,即所谓的“珍珠项链征”,诊断率为 39.6% (108/273)。超声联合增强 CT 检查 101 例,诊断率为 57.4% (58/101)。超声联合 MRCP/增强 MRI 检查 246 例,诊断率为 44.7% (110/246)。超声联合增强 CT、MRCP 或增强 MRI 70 例,诊断率为 62.9% (44/70)。

### 2.2 病理及分型

419 例(91.3%)行腹腔镜胆囊切除术,40 例(8.7%)行腹腔镜中转开腹或开腹胆囊切除术。427 例(93.0%)合并胆囊炎,284 例(61.9%)合并胆囊结石,54 例(11.8%)合并胆固醇沉积症(含胆固醇性息肉),12 例(2.6%)合并胆囊腺瘤,2 例(0.4%)合并胆囊癌,但无法确认是否来源于胆囊腺肌增生上皮区域,7 例(1.5%)合并胆囊上皮异型增生或非典型增生(其中 4 例发生在胆囊腺肌增生上皮区域)。病理或影像学确认分型 268 例,其中局限型 226 例(常位于胆囊底部,表现为隆起型病变),节段型 22 例(常见于胆囊体部,形成一个环形狭窄环,形状像一个沙漏),弥漫型 20 例(胆囊壁整体弥漫性增厚)。

## 3 讨论

虽然 ADM 患病率并不高,随着超声的普及,逐渐成为一种比较常见的胆囊疾病。ADM 在切除的胆囊标本中发现率为 2%~8.7%<sup>[3]</sup>,本组发现率为 3.2% (459/14 299)。男女比例各不相同<sup>[4~6]</sup>,大多数女性比例高,本组男:女为 1:1.18。ADM 常见于 50~59 岁的人群<sup>[7]</sup>,本组 ADM 以 40~69 岁最为多见,其中以 50~59 岁为著,平均年龄 52.5 岁。

ADM 病因及发病机制目前还不明确,有一部分学者认为胆囊结石及胆囊慢性炎症的长期刺激是导致 ADM 的重要因素<sup>[8,9]</sup>,ADM 中 25%~95%<sup>[10~12]</sup>合并胆囊结石,33%~100%<sup>[7,13,14]</sup>合并胆囊炎。本组 ADM 合并胆囊结石占 61.9% (284/459),合并胆囊炎占 93.0% (427/459)。ADM 缺乏特异性的临床表现和体征,当合并胆囊炎、胆囊结石时常表现为

胆囊炎、胆囊结石的临床症状,本组 77.8% (357/459) 的 ADM 有症状,17.9% (82/459) 有体征,常因胆囊结石、胆囊炎等原因行胆囊切除术后意外发现 ADM。

Jurtas 等<sup>[15]</sup>将 ADM 分为 3 型:局限型、节段型及弥漫型,各分型比例各报道不同。高鹏骥等<sup>[7]</sup>报道 205 例 ADM 局限型为 80%,节段型为 12.2%,弥漫型为 7.8%。本组经病理或影像学诊断分型 ADM 268 例,其中局限型 226 例,节段型 22 例,弥漫型 20 例,局限型最为多见,且常位于底部,节段型和弥漫型较为少见,但因部分病例未通过病理或影像学确认分型,尚无法确认各型的比例。

ADM 的术前诊断多依赖于影像学检查,超声对于 ADM 诊断率为 16.2% ~ 66%<sup>[7,13,16]</sup>,本组超声对 ADM 诊断率仅为 24.5% (96/392),考虑与合并胆囊结石比例不同以及样本量的大小有关。CT 对于 ADM 的诊断率为 26.5% ~ 75%<sup>[3,7,12]</sup>,本组增强 CT 对于 ADM 诊断率为 40.7% (55/135)。Yoshimitsu 等<sup>[16]</sup>报道增强 MRI 的诊断准确率高达 93%,但当 R-A 窦直径 <3.0 mm 时,或者窦内充满浓缩的胆汁或小结石时,MRI 对于 ADM 的灵敏度仅为 62%<sup>[17]</sup>。高鹏骥等<sup>[7]</sup>报道 MRI 诊断准确率仅为 43.8%,本组 MRCP 或增强 MRI 诊断 ADM 的诊断率也仅为 39.6% (108/273)。本组超声、增强 CT 以及 MRCP/增强 MRI 对于 ADM 诊断率均低于文献报道,考虑与合并胆囊炎及胆囊结石的比例较高有关,常被漏诊或误诊为胆囊炎、胆囊结石。超声目前是诊断胆囊疾病最常用的方法,超声的诊断率较低,但超声联合增强 CT 时诊断率上升至 57.4% (58/101),超声联合 MRCP/增强 MRI 时诊断率上升至 44.7% (110/246),三者联合时诊断率上升至 62.9% (44/70),提示我们需综合应用影像学检查来提高 ADM 的诊断率。CT 的价格较昂贵且有创,不如超声及 MRCP 或增强 MRI 在临床上应用广泛,建议对超声疑诊 ADM 的患者,应用 MRCP 或增强 MRI 进行进一步协助诊断,必要时加用增强 CT 以提高 ADM 的术前诊断率。

ADM 自 20 世纪 80 年代以来陆续被报道有恶变倾向,文献报道癌变率 3% ~ 10%<sup>[2]</sup>,Kim 等<sup>[18]</sup>回顾分析 113 例 ADM 无一例癌变,关于 ADM 与胆囊癌的相关性仍存在争议。一部分学者主张 ADM 一经诊断应行手术切除,而另一部分学者建议合并结石或有症状的 ADM 行手术切除<sup>[19]</sup>,因为结石、慢性炎症可能导致上皮化生、异型性及胆囊癌。本研究 7 例腺体上皮存在非典型增生或异型增生,其中 4 例发生于 R-A 窦区域上皮,说明 R-A 窦区域腺体上皮可能发生癌变,另 2 例合并胆囊癌,但因癌细胞浸

润无法评估是否来源于 R-A 窦区域上皮。Pellino 等<sup>[20]</sup>推荐节段型、弥漫型 ADM 一经诊断行手术切除,而局限型 ADM 则与胆囊息肉样病变采用相同的处理方式,若无症状、直径 <1.0 cm 且无危险因素每 3 ~ 6 个月随访,否则行手术切除。鉴于 ADM 合并胆囊癌前病变或癌变的比例仅为 2.0%,部分无症状且不合并胆囊癌危险因素的局限型 ADM 可考虑随访观察。腹腔镜胆囊切除手术微创且未明显增加术后并发症的发生率,已经成为胆囊良性疾病手术的金标准<sup>[21]</sup>,所以需手术的 ADM 患者首选腹腔镜胆囊切除术,可疑恶性的 ADM 患者根据具体情况选择手术方式。吴连宝等<sup>[22]</sup>提出 ADM 病变区域部分切除术,但此术式目前还需要更多大样本数据验证该方法的可行性。

ADM 多发于中老年,常合并胆囊炎以及胆囊结石。此病术前影像学诊断率不高,超声联合增强 CT 或超声联合 MRCP 或增强 MRI 的诊断率较单独超声检查高,需综合运用影像学检查。目前,腹腔镜胆囊切除术仍然是 ADM 的主要治疗方式。虽然 ADM 的 R-A 窦区域上皮可能发生癌变,但 ADM 合并胆囊癌比例较低,部分无症状且不合并胆囊癌危险因素的局限型 ADM 患者可考虑随访观察。

## 参考文献

- 1 徐玉彬,张培建,薛峰.胆囊腺肌症的发病机制与影像学诊断进展.中华临床医师杂志(电子版),2015,9(11):2187-2190.
- 2 刘厚宝,王越琦.胆囊息肉及胆囊结石与胆囊癌的争议与共识.中国实用外科杂志,2014,34(1):47-51.
- 3 Yoon JH, Cha SS, Han SS, et al. Gallbladder adenomyomatosis: imaging findings. Abdom Imaging,2006,31(5):555-563.
- 4 Secil M, Karasu S, Sagol O, et al. Combined segmental and focal adenomyomatosis involving the body of the gallbladder. J Clin Ultrasound,2005,33(5):248-250.
- 5 Il'Chenko AA, Orlova I, Bystrovskaya EV, et al. Adenomyomatosis of the gallbladder the analysis of 328 operating cases. Eksp Klin Gastroenterol,2013,(5):114-120.
- 6 殷雷,邱法波,吴昌亮,等.中国近 30 年胆囊腺肌增生症流行病学特征及诊治经验.中国现代医学杂志,2012,22(18):66-70.
- 7 高鹏骥,张龙辉,王东,等.胆囊腺肌症的诊治:附 205 例报告.中国普通外科杂志,2015,24(8):1155-1158.
- 8 Bedirli A, Kerem M, Bostanci H, et al. Coexistence of Mirizzi syndrome with adenomyomatosis in the gallbladder: report of a case. Hepatobiliary Pancreat Dis Int,2007,6(4):438-441.
- 9 文铭,朱世能.肝胆肿瘤诊断外科病理学.上海:上海科技出版社,2002.314.
- 10 Ootani T, Shirai Y, Tsukada K, et al. Relationship between gallbladder carcinoma and the segmental type of adenomyomatosis of the gallbladder. Cancer,1992,69(11):2647-2652.
- 11 Appukuttan M, Mahansaria S, Behari C, et al. Education and Imaging. Hepatobiliary and pancreatic: adenomyomatosis of the gallbladder. J Gastroenterol Hepatol,2013,28(10):1587.

## (上接第 963 页)

- 12 Nguyen MS, Voci S. Adenomyomatosis. Ultrasound Q, 2013, 29(3): 215 - 217.
- 13 张勤勤, 陈 菲, 邱少东. 超声和 CT 对胆囊腺肌增生症诊断价值的对照分析. 临床肝胆病杂志, 2014, 30(6): 543 - 545.
- 14 尹大龙, 刘连新, 罗 辉, 等. 胆囊腺肌增生症伴胆囊囊肿一例. 中华肝胆外科杂志, 2009, 15(4): 261.
- 15 Jutras JA, Longtin JM, Levesque HP, et al. Hyperplastic cholecystoses. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med, 1960, 83(5): 795 - 827.
- 16 Yoshimitsu K, Honda H, Aibe H, et al. Radiologic diagnosis of adenomyomatosis of the gallbladder: comparative study among MRI, helical CT, and transabdominal US. J Comput Assist Tomogr, 2001, 25(6): 843 - 850.
- 17 Catalano OA, Sahani DV, Kalva SP, et al. MR imaging of the gallbladder: a pictorial essay. Radiographics, 2008, 28(1): 135 -

155, quiz 324.

- 18 Kim JH, Jeong IH, Han JH, et al. Clinical/pathological analysis of gallbladder adenomyomatosis; type and pathogenesis. Hepatogastroenterology, 2010, 57(99 - 100): 420 - 425.
- 19 何 潇, 徐 智. 胆囊腺肌增生症的研究进展. 中国微创外科杂志, 2016, 16(6): 562 - 565.
- 20 Pellino G, Sciaudone G, Candilio G, et al. Stepwise approach and surgery for gallbladder adenomyomatosis: a mini-review. Hepatobiliary Pancreat Dis Int, 2013, 12(2): 136 - 142.
- 21 周正辉, 应佑华, 王 征. 困难腹腔镜胆囊切除术的临床体会. 中国微创外科杂志, 2015, 15(2): 177 - 178, 192.
- 22 吴连宝, 胡 海, 蔡景理, 等. 胆囊腺肌增生症行保胆治疗的研究. 中华腔镜外科杂志, 2015, 8(6): 403 - 407.

(收稿日期: 2017 - 12 - 15)

(修回日期: 2018 - 07 - 22)

(责任编辑: 李贺琼)