

## · 病例报告 ·

## 内镜黏膜下剥离术治疗直肠血管淋巴管瘤 1 例\*

张燕宁 许少策<sup>①</sup> 谢龔峰 冯彦虎 王 祥 王鹏飞\*\*

(兰州大学第二医院消化科, 兰州 730030)

文献标识: D 文章编号: 1009-6604(2024)09-0651-03

doi: 10.3969/j.issn.1009-6604.2024.09.012

血管淋巴管瘤是少见的良性肿瘤, 主要发生在胰腺、脾脏和下肢, 很少发生在胃肠道。2020 年我们行内镜黏膜下剥离术 (endoscopic submucosal dissection, ESD) 成功治疗 1 例直肠血管淋巴管瘤, 报道如下。

## 1 临床资料

患者男, 55 岁, 因“腹痛、腹胀 1 个月”就诊于我科, 无便血、里急后重。既往史、个人史、家族史均无特殊。查体未见阳性体征。血常规、血生化、肿瘤标志物 (AFP、CEA、CA125、CA19-9) 及粪检均正常。结肠镜检查 (图 1) 于直乙交界部可见一个 2.0 cm × 1.8 cm 黏膜下隆起型病变, 表面结构与部分颜色基本与周边正常黏膜一致, 局部呈淡蓝色, 质柔软, 考虑病变有出血风险, 未取活检; 超声肠镜 (图 2) 提示病变来源于黏膜下层, 呈分隔、多腔、囊状低回声改变, 边界清晰, 大小约 17.4 mm × 7.3 mm, 肌层结构完整。全腹增强 CT 检查未见明显异常。初步诊断为直肠黏膜下肿物, 海绵状血管瘤或深在性囊性结肠炎可能。2020 年 7 月 13 日行 ESD (图 3), Dual 刀 (KD-650Q, 奥林巴斯) 沿隆起边缘约 4 mm 环周标记, 黏膜下注射亚甲蓝肾上腺素生理盐水溶液, 抬举征阳性, Dual 刀环周切开及剥离, 创面处理, 标本回收, 术程顺利, 手术时间 25 min。

术后标本 (图 4) 大小 3.8 cm × 3.6 cm, 厚 0.2 ~ 0.6 cm, 标本中央可见一大小约 2 cm × 1.3 cm × 0.6

cm 灰黄色隆起, 透光观察可见中央扩张的黄褐色的血管团, 福尔马林固定后, 切开标本剖面呈灰褐色多房囊性, 可见白色乳糜样液体从多房囊腔流出。镜下 (图 5) 可见血管及淋巴管组织间或分布, 肿瘤累及黏膜固有层深部、黏膜肌层及黏膜下层, 水平切缘及垂直切缘未见肿瘤成分残留, 免疫组化 (图 6) Fli-1 (+), CD31 (+), D2-40 (+), Desmin (+), 最终诊断为血管淋巴管瘤。术后 3 天出院。术后 3 年复查结肠镜, 未见异常。

## 2 讨论

血管淋巴管瘤因既具有血管瘤的成分, 也有淋巴管瘤的成分, 又称为脉管瘤。血管淋巴管瘤发生的平均年龄约 42 岁, 其中 84% 的年龄在 20 岁以上, 男女比 1:1.38<sup>[1]</sup>, 可发生于眼眶、舌、颈、纵隔、胰腺、脾、肝、肾上腺、腹膜后和四肢<sup>[2]</sup>。根据病因, 血管淋巴管瘤分为原发性和继发性, 前者被认为是血管系统的先天性畸形, 肿瘤的形成可能是由于胚胎发育不良的血管组织与体循环之间的静脉淋巴管联系受阻; 后者通常是由于外伤或手术引起淋巴管损伤, 导致淋巴液引流不足而引起的<sup>[3]</sup>。本例考虑为原发性。

肠道血管淋巴管瘤相对罕见, 临床表现为无痛性便血、贫血、腹胀、肠梗阻等为主<sup>[4]</sup>。本例以腹部胀痛为主, 有必要进行结肠镜检查, 与结肠息肉、肿瘤、痔疮等相鉴别。本例与文献报道一致, 内镜下特

\* 基金项目: 兰州大学第二医院萃英科技创新计划 (CY2023-BJ-07)

\*\* 通讯作者, E-mail: wpfw@foxmail.com

① 病理科

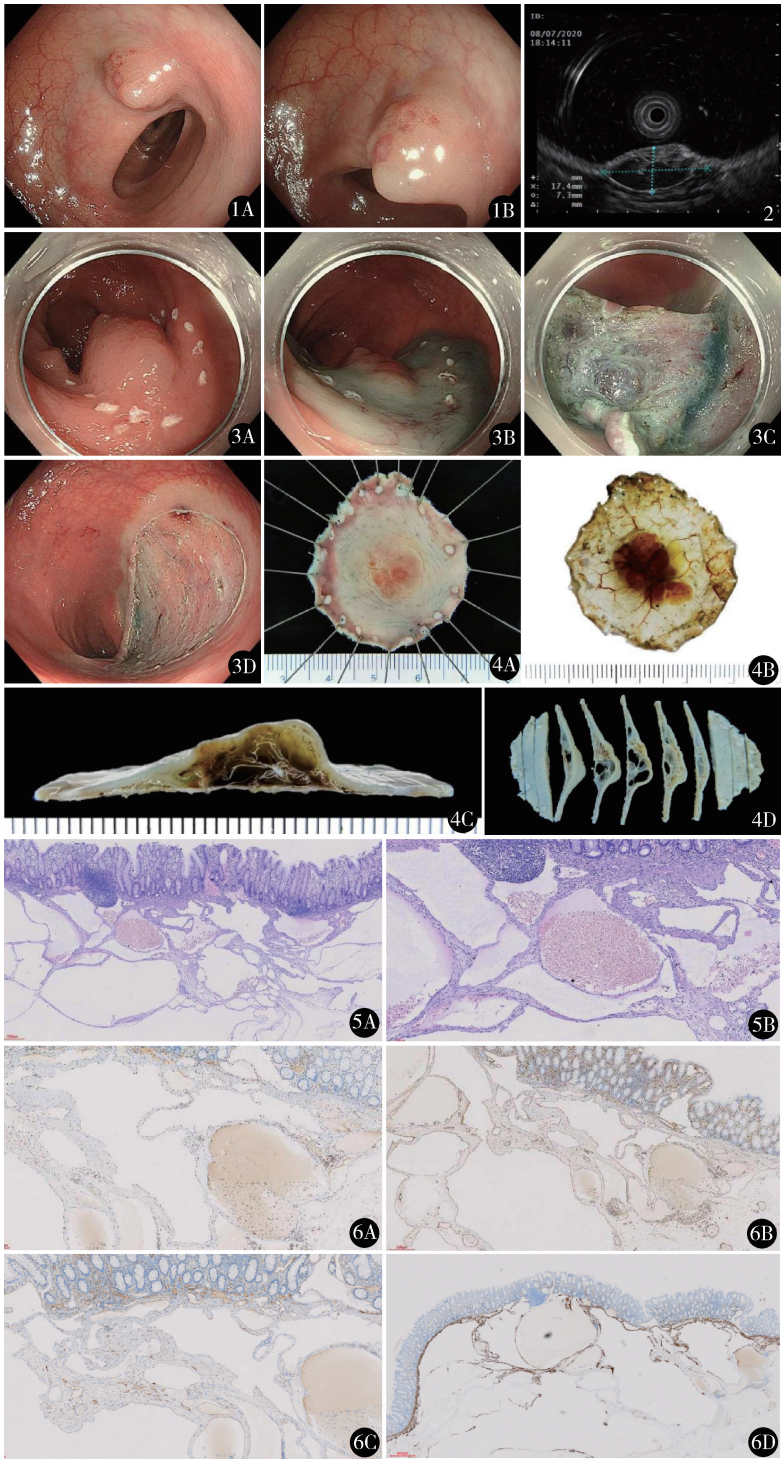


图 1 结肠镜示:直乙交界部黏膜下隆起型病变,表面结构和部分颜色基本与周边正常黏膜一致,局部呈淡蓝色,质柔软 图 2 超声内镜示:黏膜下层分隔、多腔、囊状低回声改变,边界清晰 图 3 ESD:A. Dual 刀沿隆起边缘标记;B. 黏膜下注射亚甲蓝肾上腺素生理盐水,病变抬举征阳性;C. Dual 刀环周切开及剥离;D. 创面处理 图 4 大体标本:A. 中央可见一灰黄色隆起;B. 透光观察可见中央扩张的黄色血管团;C、D. 福尔马林固定后剖面呈灰褐色多房囊性,切开过程可见白色乳糜样液体从多房囊腔流出 图 5 HE 染色:血管和淋巴管扩张并间或分布(A.  $\times 100$ ;B.  $\times 400$ ) 图 6 免疫组化:A. Fli-1 ( + ) (  $\times 200$  );B. CD31 ( + ) (  $\times 200$  );C. D2-40 ( + ) (  $\times 200$  );D. Desmin ( + ) (  $\times 40$  )

征性表现为略隆起的蓝色结节或血管增生,出血风险较高,不建议取活检,超声内镜表现为边界清晰的多房囊性无回声肿块。CT 和 MRI 通常不能准确诊断血管淋巴瘤,因为病变是血管和淋巴管的混合,在影像学上表现不明确,但 CT 在确定肿块的范围以及手术策略的选择方面是有意义的<sup>[5]</sup>。MRI 检查的囊液信号的不同与囊液的成分关系密切,可判断病灶是以血管瘤为主或者是以淋巴血管瘤为主,是否出现感染或者出血<sup>[6]</sup>。本例病变较小,增强 CT 检查无明确表现。

血管淋巴瘤的最终诊断为手术切除后的病理检查,镜下可见大量扩张的血管和淋巴管,需进一步行免疫组化进行鉴别。血管内皮细胞和淋巴内皮细胞都表达 CD31 和 CD34,而 D2-40 仅在淋巴瘤和一些恶性血管肿瘤中表达<sup>[7]</sup>。本例肿瘤细胞 CD31(+)、Fli-1(+)和 D2-40(+)为血管淋巴瘤的病理诊断提供了有力的证据。

血管淋巴瘤虽为良性肿瘤,但 Toyoki 等<sup>[8]</sup>报道 1 例胰腺的血管淋巴瘤侵入十二指肠而引起消化道出血。外科手术是血管淋巴瘤最有效的治疗措施,特别是肿瘤较大并对周围组织产生压迫时。具体术式要根据肿瘤部位、大小及是否累及周围器官或组织选择,术中应完整切除病变并术后定期复查。对于消化道特殊部位的血管淋巴瘤,可采用内镜黏膜切除术或 ESD 及机器人手术<sup>[9,10]</sup>。本例采用 ESD 完整切除直肠血管淋巴瘤,创伤小,恢复快,而且保留消化道的完整性,随访 3 年未见复发。因为病变富血管,ESD 发生出血风险较高,需要有经验的内镜医师操作。

本例直肠血管淋巴瘤采用 ESD 治疗,疗效满

意。临床、病理及内镜医生均需提高对本病的认识,注意鉴别,避免漏诊及误诊。

参考文献

1 Li X,Zhang Y,Sun H,et al. Hemolymphangioma of the transverse mesocolon;a case report and literature review. *Transl Cancer Res*, 2021,10(8):3849-3855.

2 Li QY,Xu Q,Fan SF,et al. Gastric haemolymphangioma;a literature review and report of one case. *Br J Radiol*,2012,85(1010):e31-e34.

3 Guillot M,Dufier JL,Pierre-Kahn A,et al. Hemolymphangioma of the orbit in children. *Arch Fr Pediatr*,1983,40(5):401-403.

4 Yang J,Zhang Y,Kou G,et al. Jejunum hemolymphangioma causing refractory anemia in a young woman. *Am J Gastroenterol*,2020,115(6):810.

5 Pan L,Jian-Bo G,Javier PTG. CT findings and clinical features of pancreatic hemolymphangioma;a case report and review of the literature. *Medicine (Baltimore)*,2015,94(3):e437.

6 邹红群. 血管淋巴瘤的影像征象及病理特征探讨. *中外医疗*, 2020,39(8):193-195.

7 张熔熔,万佳艺. D2-40、CD31、CD34 在脾脏脉管瘤中的表达及意义. *中华肝胆外科杂志*,2012,18(2):88-90.

8 Toyoki Y, Hakamada K, Narumi S, et al. A case of invasive hemolymphangioma of the pancreas. *World J Gastroenterol*,2008,14(18):2932-2934.

9 周海斌,范震,王玲玲,等. 内镜黏膜切除术治疗回盲部脉管瘤一例. *中华消化内镜杂志*,2020,37(10):754-755.

10 Li TN,Liu YH,Zhao J,et al. Treatment of hemolymphangioma by robotic surgery:a case report. *World J Gastrointest Surg*, 2024,16(2):596-600.

(收稿日期:2024-03-26)

(修回日期:2024-05-28)

(责任编辑:王惠群)