

· 论著 ·

胃完全囊变胃肠道间质瘤三例CT特征并文献复习

吴晓佳¹ 柯东平¹ 张 炯^{1,*} 苏树燕¹ 黄瑞滨¹ 洪良丽² 李欣欣³

1. 汕头大学医学院第一附属医院放射科 (广东 汕头 515041)

2. 汕头大学医学院第一附属医院病理科 (广东 汕头 515041)

3. 汕头大学医学院第一附属医院胃肠外科 (广东 汕头 515041)

【摘要】目的 分析胃完全囊变胃肠道间质瘤(GIST)的影像征象, 以提高对该病的认识。方法 回顾性分析本院3例及文献报道13例全囊变胃肠道间质瘤(GIST)临床及CT检查资料, 总结其特点。结果 显示发病年龄31~79岁, 平均62岁。男性9例, 女性7例, 主要症状为腹痛或排黑便。肿瘤最大径4~18 cm, 平均9.8 cm, CT表现呈单房囊性(13/16)、腔外生长多见(14/16), 囊壁多均匀、光滑, 厚度约2~5mm(13/16), 囊壁可有钙化(4/16), 囊内多呈均匀液性密度, 增强均表现仅囊壁轻度均匀强化, 内部无强化, 周围器官结构少见受累。结论 胃完全囊变GIST临床罕见, 其CT表现尚具有一定特征, 但最终确诊取决于组织病理学及免疫组化检查。

【关键词】胃肠道间质瘤; 胃; 完全囊变; 体层摄影术, X线计算机; 鉴别诊断

【中图分类号】R322.4+4

【文献标识码】A

DOI:10.3969/j.issn.1009-3257.2023.11.004

CT Features of Three Cases of Gastric Gastrointestinal Stromal Tumor with Complete Cystic Degeneration and Literature Review

WU Xiao-jia¹, KE Dong-ping¹, ZHANG Jiong^{1,*}, SU Shu-yan¹, HUANG Rui-bin¹, HONG Liang-li², LI Xin-xin³.

1. Department of Radiology, The First Affiliated Hospital of Shantou University Medical College, Shantou 515041, Guangdong Province, China

2. Department of Pathology, The First Affiliated Hospital of Shantou University Medical College, Shantou 515041, Guangdong Province, China

3. Department of Gastrointestinal Surgery, The First Affiliated Hospital of Shantou University Medical College, Shantou 515041, Guangdong Province, China

Abstract: **Objective** To analyze the imaging features of complete cystic gastrointestinal stromal tumor (GIST) in order to improve the understanding of the disease. **Methods** The clinical and CT findings of 3 cases of total cystic gastrointestinal stromal tumor (GIST) in our hospital and 13 cases reported in the literature were reviewed retrospectively. **Results** Showed that the age of onset ranged from 31 to 79 years, with an average of 62 years. There were 9 males and 7 females. The primary symptoms were abdominal pain or black stool. The longest diameter of the tumor is 4~18 cm, with an average of 9.8 cm. The CT findings are unilocular cystic (13 / 16) and extraluminal growth is common (14 / 16). The cystic wall is uniform and smooth, with a thickness of about 2~5 mm (13 / 16). The cystic wall can have calcification (4 / 16). Most of the cysts show uniform liquid density. The enhancement is only mild to moderate uniform enhancement of the cystic wall, and there is no enhancement inside. Peripheral organ structures are rarely involved. **Conclusion** Complete cystic change of stomach is rare in GIST, and its CT findings still have some characteristics, but the final diagnosis still depends on histopathology and immunohistochemistry.

Keywords: Gastrointestinal Stromal Tumor; Stomach; Complete Cystic; Computed Tomography; Differential Diagnosis

胃肠道间质瘤(gastrointestinal stromal tumor, GIST)是消化道肿瘤比较常见间叶源性肿瘤, 具有潜在恶性, 常见于胃和小肠^[1-2]。典型的GIST常表现为富血供的实性或囊实性肿块, 可有囊变、坏死, 且程度往往较轻, 钙化少见, 通常诊断相对容易。然而, 在临床实践中, 少数GIST可显著囊性变, 甚至完全囊变, 极易误诊为其他囊性肿瘤或肿瘤样病变^[3-5]。目前关于胃肠道间质瘤完全囊变的文献报道较少, 相关影像的文献报道多为个案报告^[6-18]。现将我院3例胃部完全囊变GIST的基本资料报告如下, 分析其临床特点、CT表现及病理特征, 并复习相关文献, 以期提高对该病认识。

1 资料与方法

1.1 一般资料 回顾性分析2016年1月至2021年1月汕头大学医学院第一附属医院经手术后病理学检查证实为胃部完全囊变GIST患者3例的临床及影像学资料。其中女性2例, 男性1例; 年龄分别为59岁、65岁和31岁, 临床症状包括上腹部隐痛1例, 反复排黑便并头晕2例, 病程1周~2月。术前病例1和2行上消化道内镜及超声内镜检查。

1.2 方法 采用GE Discovery HD 750 CT机。检查前患者禁食8h。取仰卧位, CT扫描范围从膈顶至盆腔。CT扫描参数: 管电压为

120kV, 管电流220mA, 螺距0.98, 层厚和层间距均为5mm, 扫描后0.625mm薄层重建; 增强扫描采用对比剂优维显 (300mgI/mL, 德国先灵公司生产) 以3.0 mL/s经肘静脉团注后延迟30s、60s、160s分别行三期扫描, 用量75~80mL。3例均行CT平扫和三期动态增强扫描。

1.3 文献检索 以“囊性胃肠道间质瘤”或“胃”、“囊性或完全囊变”和“胃肠道间质瘤”为关键词检索中国知网及万方数据知识服务平台的中文文献, 以“cystic gastrointestinal stromal tumor”或“remarkable cystic change or cyst or cystic”、“gastric”和“gastrointestinal stromal tumor”为关键词检索PubMed数据库的英文文献, 搜索时间范围从建库至2021年12月。纳入的文献均为经影像学 and 手术病理确诊的胃部完全囊性GIST。排除标准: 部分囊变的囊实性肿瘤; 确诊为完全囊性胃GIST, 但无法获得全文信息, 不能进行数据统计者; 重复报道的病例; 经伊马替尼等药物辅助治疗后的患者。

1.4 资料分析 由2名高年资消化放射学医师联合分析肿瘤部位、大小、生长方式、边界、形态、囊性特点(囊壁、分隔、单/多房等)及强化程度等影像特征, 判断肿块有无钙化、出血等。病理资料由一名副主任医师进行分析诊断。

【第一作者】吴晓佳, 男, 主治医师, 主要研究方向: 腹部CT影像诊断。E-mail: 759574415@qq.com

【通讯作者】张 炯, 男, 主治医师, 主要研究方向: 腹部影像诊断。E-mail: debe21@163.com

2 结果

2.1 CT表现 3例患者均表现为圆形或类圆形薄壁单囊状肿块(图1~12), 其中病例1病灶位于胃体黏膜下呈壁内、突向腔内生长(图1~6), 病例2和3位于胃窦小弯侧黏膜下呈壁外生长(图10~12), 边界清晰。3例肿瘤囊壁厚薄尚均匀, 壁厚约2~4 mm, 未见壁结节或囊内分隔征象, 病例1病灶囊壁可见点状钙化灶(图1), 囊内容物均匀呈液性密度, CT值约8~22 HU, 囊壁CT平扫值约20~40 HU。增强后, 动脉期囊壁边缘呈规则环形强化(图3), CT值为47~65 HU, 静脉期及延迟期边缘强化进一步持续略增强(图4), 囊性内容物无强化(图2~图4)。3例患者均未出现侵犯邻近器官及腹腔内转移征象, 无淋巴结转移。

2.2 病理表现 大体所见: 3例肿瘤最大径分别为4.5、5.5和4 cm, 均呈单房囊性, 包膜清晰, 病例1和3肿瘤切开后囊内为淡黄色清亮液体(图7), 病例2肿瘤囊液呈灰红色, 为陈旧性出血。镜下: 肿瘤细胞呈上皮样或梭形(图8), 片状、巢状或束状排列, 核分裂象均<5个/50 HPF。免疫组化示: Vimentin、DOG-1和CD117阳性3例(图9), CD34阳性1例, S-100、Desmin和SMA3例均呈阴性表达, Ki-67增殖指数约<1%~5%, 3例NIH危险性程度均为低危。

2.3 病例资料汇总分析 中英文检索到符合纳入标准的文献共13篇^[6-18], 共有13例具有完整CT资料的胃完全囊性GIST患者, 加上本院3例, 合计16例。16例胃完全囊性GIST患者资料汇总见表1。其中以腔外生长的GIST 14例(87.5%), 14例肿瘤最大径大于5 cm(87.5%), 囊壁厚度为2~5 mm 13例(81.3%), 单房者多见(81.3%)。术前影像学误诊12例(75%)。

表1 16例胃完全囊性GIST患者的临床及CT特征

项目	数值
年龄(岁, 范围)	31~79(62±14)
性别(男/女)	9/7
主要临床症状(例%)	腹痛 8(50)
	腹部不适 1(6.2)
	黑便、贫血 5(31.4)
	腹部肿块 1(6.2)
	偶然发现 1(6.2)
囊性特征(例%)	单房 13(81.3)
	多房 3(18.7)
肿瘤生长方式(例%)	腔内 1(6.2)
	腔内外 1(6.2)
	腔外 14(87.5)
肿瘤大小(cm, 范围)	4~18(9.8±4.5)
	<5 cm (例%) 2(12.5)
	5~10 cm (例%) 8(50)
	>10 cm (例%) 6(37.5)
囊壁厚度(例%)	<2 mm 2(12.5)
	2~5 mm 13(81.3)
	5~10 mm 1(6.2)

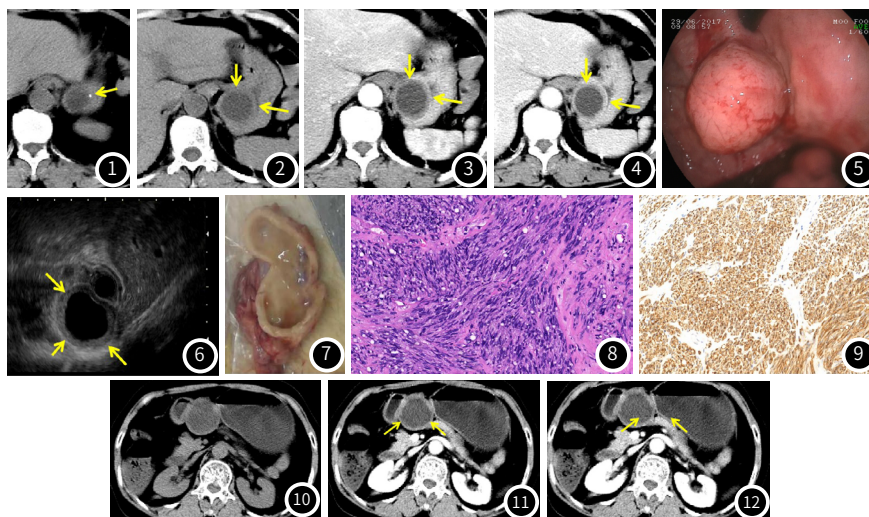


图1~图9 例1, 女, 63岁, 排黑便伴头晕乏力10d。CT平扫示肿瘤囊壁可见点状钙化(图1↑); 肿瘤位于胃底黏膜下突向腔内生长, 完全囊性, 内壁光滑, 囊壁均匀(图2), 动脉期增强CT示病灶囊壁呈轻度强化(图3), 静脉期进一步持续略增强(图4), 囊内未见强化。内镜下见胃底黏膜下一隆起肿物, 局部伴有活动性渗血(图5); 超声内镜示肿物呈囊性, 边界清晰, 内部呈均匀低回声, 囊壁均匀(图6↑)。术后肿物大体切开呈囊性, 囊内为淡黄色清亮液体(图7)。病理显微镜下示肿瘤细胞呈梭形, (图8, HE×20), 免疫组化示CD117弥漫阳性(图9)。图10~图12 例2, 女, 59岁, 上腹部隐痛2月。肿瘤位于胃窦小弯侧突向腔外生长, 呈完全囊性, CT平扫囊内密度呈液性(图10), 增强扫描囊壁呈轻度强化, 囊内无明显强化(图11~图12)。

3 讨论

3.1 概述 GIST指发生于胃肠道黏膜下的一种间叶源性肿瘤, 目前多数认为GIST是起源于Cajal间质细胞(interstitial cells of Cajal, ICC)或向ICC分化的多潜能干细胞, 是一类特殊的介于成纤维细胞与神经细胞之间的胃肠道间质细胞, 以胃部和小肠最常见^[1-2]。胃部GIST多表现为实性肿瘤, 亦可见小囊变区和出血, 但瘤体显著囊性变的少见, 尤其是形态表现以完全囊性变为特征的GIST鲜有报道^[3-5]。近30年中外文献中, 仅有13例关于胃部囊性GIST的相关报道^[6-17], 加上汕头大学医学院第一附属医院3例, 共

16例。发病年龄为31~79岁(平均年龄为62岁), 性别上无明显区别^[3], 但也有报道女性多于男性, 男女比例约1:2.5^[4]。最常见临床症状是腹部隐痛和排黑便。我院收集3例中2例为女性, 1例男性; 2例以排黑便为首发临床表现, 1例表现为腹痛。

3.2 CT表现 典型GIST的CT表现有相对特征性^[31-33], 体积小的病灶多呈圆形、边界清晰、密度均匀实质性肿块, 向腔内或腔外生长, 较少出血出血和囊变; 而体积较大GIST往往具有恶性征象, 瘤内常出现出血、坏死和囊变, 呈囊实性改变; 在临床实践中, 典型GIST的术前CT诊断往往相对容易。然而, 对于以显著囊变

或完全囊变为表现的GIST则极易造成误诊。本研究的胃完全囊变GIST术前误诊12例。根据本组CT表现并结合文献报道^[6-18]，本病具有以下特征：(1)病灶多呈单房囊性(13/16)，边界清晰，向腔外生长(14/16)，直径多大于5cm(14/16)；(2)囊壁：以薄而光滑的囊壁为主，厚度约2~5mm(13/16)，囊壁可见点状、短线条或包环样钙化(4/16)，偶可见壁结节(2/16)，增强后囊壁呈均匀轻中度强化；(3)囊内多以均匀液性密度为主，偶可见囊内分隔及出血灶，增强后囊内容物未见强化；(4)未侵犯周围器官，瘤周亦未见肿大淋巴结；值得注意的是，囊性GIST偶可破裂(2/16)。

3.3 鉴别诊断 (1)胃肠道神经鞘瘤：由于神经鞘瘤与GIST在临床上和CT表现较为相似，容易相互混淆^[19]。既往文献基于CT特征对两者鉴别诊断陆续有报道。He等^[20]采用CT比较了GIST和神经鞘瘤的定性、定量CT特征，结果发现神经鞘瘤多呈圆形、病灶相对较小、强化相对均匀，灶周多有肿大淋巴结；病灶动脉期标准化CT值相对较低。孙骏等^[21]采用基于增强CT全瘤直方图分析鉴别≤5cm胃部GIST和神经鞘瘤，发现增强CT直方图对鉴别GIST和神经鞘瘤有较高价值，动脉期第10%百分位数和静脉期变异度的诊断效能相对较高。Wang等^[22]采用基于CT的深度学习方法鉴别胃神经鞘瘤和间质瘤，结果表明，相对于决策树、随机森林和梯度提升决策树方法，逻辑回归的算法在鉴别两者具有最高的诊断效能(AUC = 0.967)。尽管这些研究具有一定临床价值，然而，由于完全囊变的GIST临床罕见，与神经鞘瘤较难鉴别，两者最终鉴别还需依靠病理学检查。(2)胃重复囊肿：是一种少见先天性疾病，多发生于2岁以内的婴幼儿，极少发生于成人，CT主要表现为类圆形、管形、单房、壁厚的囊性包块，增强见典型双环“晕环征”，即内环为囊壁水肿黏膜和黏液组成的低密度环，外环为完整肌层构成的高密度环，合并脊柱畸形是诊断本病有力佐证^[23-24]。(3)系膜/大网膜来源囊性肿块(如淋巴管瘤、肠源性囊肿等)：通常囊壁较薄，较少出现壁结节，出血、钙化少见，与周边结构分界常较清晰，囊壁、壁结节多无或轻度强化^[25]。(4)胰腺来源囊腺瘤/癌：多发生于胰尾部，可分单房获多房，囊较大，囊内有分隔及囊壁含壁结节，恶性者周围可出现血管受侵犯、淋巴结肿大改变，正常的胰腺病侧端呈“杯口”状或“喇叭”状具有鉴别意义^[26-27]。(5)其他：如胃异位支气管囊肿、平滑肌瘤、恶性纤维组织细胞瘤伴囊性变等也需鉴别^[28-30]。

3.4 完全囊变GIST病理学特征及预后 2018年，Su等^[2]研究发现囊变与GIST的危险度分级无相关性。2019年，Xue等^[3]一项研究也支持该观点，作者总结20例少见纯囊性GIST的临床和病理特征，发现9例为低度恶性，11例为非恶性，90%患者核分裂象<5个/50 HPF，且纯囊性GIST 5年无复发生存率明显高于实性GIST(94.4%比66.1%)。据此作者认为，囊性GIST是一个相对惰性的亚型，有较好的预后，虽然肿瘤最大径往往大于5cm，甚至超过10cm，但临床医师在手术前考虑是否需伊马替尼辅助治疗时应谨慎。2021年，陈菁华等^[5]报道了3例腹腔小肠完全囊变型GIST，3例患者GIST核分裂象均<5个/50 HPF。本研究三例完全囊变GIST患者NIH危险度分级均为低危，核分裂象也均<5个/50 HPF，和文献报道符合。目前有关囊性GIST的病理学特征和预后研究报道较少，且多为案例系列报道，今后还需更大样本、多中心研究报道来进一步证实。

参考文献

- [1] Li R, Gan H, Ni S, et al. Differentiation of gastric schwannoma from gastric gastrointestinal stromal tumor with dual-phase contrast-enhanced computed tomography[J]. J Comput Assist Tomog, 2019, 43(5): 741-746.
- [2] Su Q, Wang Q, Zhang H, et al. Computed tomography findings of small bowel gastrointestinal stromal tumors with different histologic risks of progression[J]. Abdom Radiol (NY), 2018, 43(10): 2651-2658.
- [3] Xue A, Yuan W, Gao X, et al. Gastrointestinal stromal tumors (GISTs) with remarkable cystic change: a specific subtype of GISTs with relatively indolent behaviors and favorable prognoses[J]. J Cancer Res Clin Oncol, 2019, 145(6): 1559-1568.
- [4] 王翠众, 侯英勇, 沈坤堂, 等. 囊性胃间质瘤的临床病理特征及预后[J]. 中华胃肠外科杂志, 2011, 14(8): 599-602.
- [5] 陈菁华, 刘可夫, 盛二燕, 等. 完全囊变型胃肠道间质瘤的影像学表现(附3例报告并文献复习)[J]. 肿瘤影像学, 2021, 30(6): 519-524.

- [6] Naitoh I, Okayama Y, Hirai M, et al. Exophytic pedunculated gastrointestinal stromal tumor with remarkable cystic change[J]. J Gastroenterol, 2003, 38(12): 1181-1184.
- [7] Chang CY, Wang HP, Mao TL, et al. Unusual sonographic appearance of a gastrointestinal stromal tumor presenting as a large multilocular cystic mass[J]. J Clin Ultrasound, 2004, 32(4): 200-203.
- [8] Cheon YK, Jung IS, Cho YD, et al. A spontaneously ruptured gastric stromal tumor with cystic degeneration presenting as hemoperitoneum: a case report[J]. J Korean Med Sci, 2003, 18(5): 751-755.
- [9] Yu CC, Wu CC, Hwang JI, et al. Thick calcification from a GIST of the stomach penetrating into pericolic soft tissue—report of a case[J]. World J Surg Oncol, 2011, 9: 45.
- [10] De Vogelaere K, Meert V, Vandenbroucke F, et al. Unusual appearance of a pedunculated gastric tumor: always think of GIST[J]. Case Rep Surg, 2012, 2012: 815941.
- [11] Colović R, Micev M, Matić S, et al. Malignant stromal tumor of the stomach with giant cystic liver metastases prior to treatment with imatinib mesylate[J]. Vojnosanit Pregl, 2013, 70(2): 225-228.
- [12] Zhu CC, Liu Y, Zhao G. Exophytic gastrointestinal stromal tumor with cystic changes: A case report[J]. Oncol Lett, 2014, 7(5): 1427-1429.
- [13] Rana SS, Sharma V, Sharma R, et al. Gastric gastrointestinal stromal tumor mimicking cystic tumor of the pancreas: diagnosed by endoscopic ultrasound-fine-needle aspiration[J]. Endosc Ultrasound, 2015, 4(4): 351-352.
- [14] Okano H, Tochio T, Suga D, et al. A case of a stomach gastrointestinal stromal tumor with extremely predominant cystic formation[J]. Clin J Gastroenterol, 2015, 8(4): 197-201.
- [15] Sun KK, Xu S, Chen J, et al. Atypical presentation of a gastric stromal tumor masquerading as a giant intraabdominal cyst: a case report[J]. Oncol Lett, 2016, 12(4): 3018-3020.
- [16] Hamza AM, Ayyash EH, Alzafiri R, et al. Gastrointestinal stromal tumour masquerading as a cyst in the lesser sac[J]. BMJ Case Rep, 2016, 2016: bcr2016215479.
- [17] Wang L, Liu L, Liu Z, et al. Giant gastrointestinal stromal tumor with predominantly cystic changes: a case report and literature review[J]. World J Surg Oncol, 2017, 15(1): 220.
- [18] Takahashi K, Nihei T, Aoki Y, et al. Gastric gastrointestinal stromal tumor with predominant cystic formation diagnosed by endoscopic ultrasound-fine needle aspiration[J]. Clin J Gastroenterol, 2020, 13(3): 359-364.
- [19] Peltrini R, Greco PA, Nasto RA, et al. Gastric schwannoma misdiagnosed as a GIST[J]. Acta Chir Belg, 2019, 119(6): 411-413.
- [20] He MY, Zhang R, Peng Z, et al. Differentiation between gastrointestinal schwannomas and gastrointestinal stromal tumors by computed tomography[J]. Oncol Lett, 2017, 13(5): 3746-3752.
- [21] 孙骏, 沈力, 傅剑雄, 等. 基于增强CT全瘤直方图分析鉴别诊断≤5 cm胃间质瘤与胃神经鞘瘤[J]. 中国医学影像技术, 2020, 36(8): 1211-1214.
- [22] Wang J, Xie Z, Zhu X, et al. Differentiation of gastric schwannomas from gastrointestinal stromal tumors by CT using machine learning[J]. Abdom Radiol (NY), 2021, 46(5): 1773-1782.
- [23] Yoda T, Furihata M, Nagao S, et al. An adult gastric duplication cyst mimicking a gastrointestinal stromal tumor[J]. Intern Med, 2016, 55(17): 2401-2404.
- [24] Deesomsak M, Aswakul P, Junyangdikul P, et al. Rare adult gastric duplication cyst mimicking a gastrointestinal stromal tumor[J]. World J Gastroenterol, 2013, 19(45): 8445-8448.
- [25] Monabati A, Safavi M, Solhjoo F. Extragastric gastrointestinal stromal tumor presenting as omental cyst[J]. J Gastrointest Surg, 2016, 20(6): 1275-1277.
- [26] Sarsenov D, Tirnaksiz MB, Doğrul AB, et al. Heterotopic pancreatic pseudocyst radiologically mimicking gastrointestinal stromal tumor[J]. Int Surg, 2015, 100(3): 486-489.
- [27] Dhali A, Ray S, Khamrui S, et al. Mucinous cystadenocarcinoma of pancreas mimicking gastrointestinal stromal tumor of stomach: case report[J]. Int J Surg Case Rep, 2021, 85: 106240.
- [28] Hasnaoui A, Jouini R, Haddad D, et al. Gastric leiomyosarcoma and diagnostic pitfalls: a case report[J]. BMC Surg, 2018, 18(1): 62.
- [29] Agaimy A, Gaumann A, Schroeder J, et al. Primary and metastatic high-grade pleomorphic sarcoma/malignant fibrous histiocytoma of the gastrointestinal tract: an approach to the differential diagnosis in a series of five cases with emphasis on myofibroblastic differentiation[J]. Virchows Arch, 2007, 451(5): 949-957.
- [30] Xiao J, Zhang R, Chen W, et al. Ectopic bronchogenic cyst of the gastric cardia considered to be a gastrointestinal stromal tumor before surgery: a case report[J]. BMC Surg, 2020, 20(1): 42.
- [31] 石磊, 徐峰. 胃肠道间质瘤的MSCT表现与病理化验对照分析[J]. 中国CT和MRI杂志, 2017, 15(3): 109-111.
- [32] 侯毅斌, 王忠富, 陈志军, 等. 胃肠道间质瘤的影像学表现与恶性判定依据标志分析[J]. 中国CT和MRI杂志, 2015, (7): 78-79, 91.
- [33] 王德娟. 多层螺旋CT结合MRI对胃肠道间质瘤病理危险度分级的诊断价值[J]. 罕少疾病杂志, 2023, 30(1): 57-59.

(收稿日期: 2022-12-25)

(校对编辑: 韩敏求)