

· 短篇 ·

胃重复畸形手术前被误诊为左肾上腺肿瘤一例并文献复习

冯明杨¹ 胡建新^{2,*}

1.贵州医科大学泌尿外科(贵州贵阳550001)

2.贵州省人民医院泌尿外科(贵州贵阳550002)

【摘要】 胃重复畸形是一种先天性疾病,多发病于幼儿,成人发病罕见。手术前胃重复畸形极易被误诊断为左肾上腺肿瘤,给手术带来不可预知的困难。本文报道1例21岁的男性患者术前诊断为左肾上腺囊肿,术中发现囊肿来源于胃底部。行胃底部胃部分,术后病理提示“胃重复畸形”。术后随访8个月未见复发。

【关键词】 胃重复囊肿; 左肾上腺肿瘤; 误诊; 治疗; 病例报告

【中图分类号】 R736.6

【文献标识码】 D

DOI:10.3969/j.issn.1672-5131.2024.06.058

A Case Report of Gastric Duplication Cyst Misdiagnosed as Left Adrenal Cyst before Operation and Literature Review

FENG Ming-yang¹, HU Jian-xin^{2,*}.

1.Guizhou Medical University, Guiyang 550001, Guizhou Province, China

2.Guizhou Provincial People's Hospital, Guiyang 550002, Guizhou Province, China

Abstract: Duplication of the gastric is a rare congenital disease and rarely occurs in adults. Before the operation, duplication of the gastric to be misdiagnosed as left adrenal tumors, bring unpredictable difficult to surgery. In this thesis, a case of 21 years old male patient diagnosed as left adrenal cyst before operation. During the operation, we found the cyst arose from the bottom of the stomach. After the operation, the pathological diagnosis was Gastric Duplication Cyst. With 8 months' follow-up, there was no recurrence.

Keywords: *Gastric Duplication Cyst; Left adrenal tumor; Misdiagnosed; Therapy Case Reports*

消化道重复畸形包括结肠重复畸形、食管重复畸形、十二指肠重复畸形、胃重复畸形及直肠重复畸形,是一种少见的先天性疾病,多在婴幼儿时期发病,罕见于成人,其中胃重复畸形占消化道重复畸形的4%^[1]。由于临床表现不典型,影像学检查结果特异性低,在缺乏病理结果的条件下,临床多以左肾上腺囊肿收治。贵州医科大学附属人民医院收治了1例该类患者,现报告如下。

1 病例报告

患者,男,21岁。因“检查发现腹膜后肿物1周”收住院。患者无明显腹痛腰痛等症状,无高血压低血钾等表现。查体:心肺未见异常体征。腹平软,左季肋区轻压痛,无反跳痛及肌紧张,未触及明显包块,肾区无明显叩击痛。腹部增强CT提示左上腹见类圆形密度减低影,囊壁见条状、结节状钙化灶,边界清晰,大小约60mm×61mm,CT值约14HU,增强扫描未见明显

强化,与左侧肾上腺分界不清,胃稍受压(图1A、B)。初步诊断为“左肾上腺囊肿”,血浆肾素-血管紧张素-醛固酮、皮质醇、促肾上腺皮质激素均处于正常范围内。完善术前准备后在插管全麻下行腹腔镜下“左肾上腺囊肿”切除术,术中沿左肾前筋膜间隙向上游离,完全显露胃底部,同时游离包块周围及左肾上腺膈面和肾上极面离断左肾上腺中央静脉,发现包块与胃底部完全粘连无法分离,包块大小约10cm×8cm×8cm。手术中考虑肿块与胃关系密切,遂请胃肠外科医师进行手术台上会诊,予腹腔镜下采用切割闭合器60mm自胃大弯侧中点至食管左侧距离包块1cm处离断胃底体部,完整切除包块组织。术后病理报告提示“大体观:包块7×6×5cm大小,灰白色,囊性,囊内含清亮液体;镜下见:囊壁为平滑肌或玻璃样变的纤维组织,壁间淋巴细胞浸润,内衬胃粘膜。(图1C)病理诊断:胃重复畸形”。患者术后恢复良好,随访8个月未见复发。

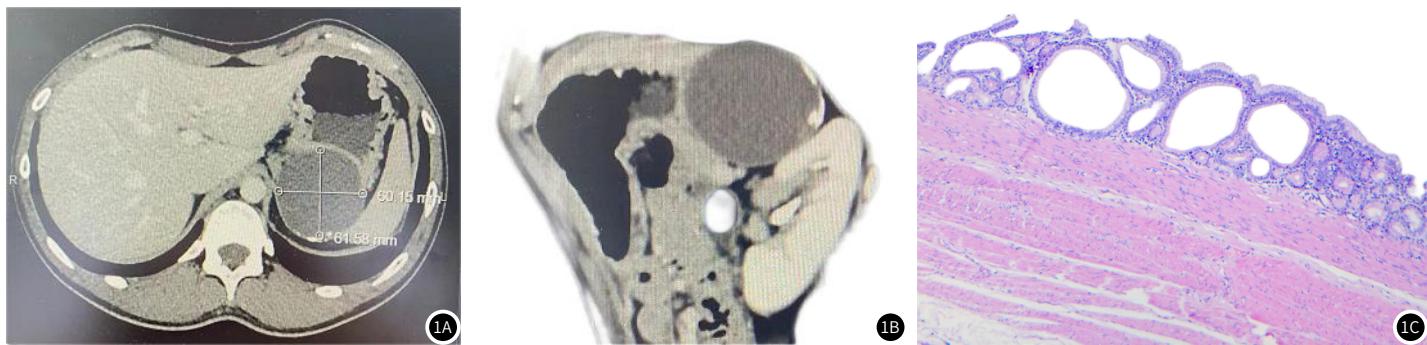


图1A-图1C 患者腹部增强CT及病理镜下观;图1A、1B:腹部水平面、矢状面增强CT(左上腹见类圆形密度减低影,囊壁见条状、结节状钙化灶,边界清晰,大小约60mm×61mm,与左侧肾上腺分界不清,胃稍受压);1C:切除包块切片(HE染色,X100)(镜下见囊壁为平滑肌或玻璃样变的纤维组织,壁间淋巴细胞浸润,内衬胃粘膜)

【第一作者】 冯明杨,男,住院医师,主要研究方向:外科学。E-mail: 651879290@qq.com

【通讯作者】 胡建新,男,主任医师,主要研究方向:泌尿外科。E-mail: hujx918@163.com

2 文献复习及讨论

2.1 病因及分型 胃重复畸形病因尚不明确，目前主要有如下学说：(1)脊索原肠分离障碍：当胚胎发育至3周时，发育为脊索的部分会发生分离而导致脊索两部分之间的背侧组织出现间隙，位于腹侧的卵黄囊或肠道内胚层会通过这个间隙膨出。卵黄囊起源的残余组织可分化为肠道任何组织^[2]。

(2)憩室样囊袋残留：胚胎发育至8~9周，上皮细胞向外膨出，形成暂时的憩室样外袋，随着胚胎发育会逐渐消失，如果未消失，该憩室样外袋可发展为重复胃畸形^[3]。

形态学上将胃重复畸形分为囊状畸形和管状畸形。当囊肿与管腔不相通时，称为囊状畸形；反之，则为管状畸形。胃重复畸形中的接近80%表现为消化道重复囊肿^[4]。

2.2 临床表现 大多数胃重复畸形的患者因在幼儿时期出现如腹痛、呕吐、可见或触及腹部包块等而被发现。成年后发病极为罕见，通常是通过体检发现(如本文患者)。有相关文献报道了9例胃重复畸形患者，其中成人病例仅有1例^[5]。胃重复畸形的临床表现无明显特异性，与其病灶大小、位置等密切相关。大约80%的胃重复畸形位于胃大弯侧，黏膜下层病变常表现为向胃腔内生长，浆膜层病变多向胃腔外生长，并常与周围脏器粘连^[6]。临床症状隐匿，当包块较大引起梗阻时，可出现上腹部疼痛、呕吐等症状。极少数胃重复畸形发生于胃小弯，可出现梗阻性黄疸、肝功能受损等症状，考虑压迫胆道系统所致。其它少见临床表现有胰腺炎、胃出血、穿孔等，绝大部分患者可无症状^[7]。

2.3 诊断与鉴别诊断 由于成人胃重复畸形缺乏特性临床表现且多数患者无明显症状，故很难通过单纯病史及体格检查诊断。有学者提出了关于胃重复畸形的病理诊断标准：病灶囊壁环绕平滑肌层，囊内覆盖消化道黏膜，病灶附着于胃壁并共享血供系统^[8]。有学者认为内镜超声(endoscopic ultrasonography, EUS)引导下细针穿刺活检(EUS-guided fine-needle aspiration, EUS-FNA)可作为一线诊断方法^[9]。CT表现胃周间隙内单发或多发低密度影，内无分隔，边界光滑、清晰，有占位效应，增强CT上少见囊壁钙化，且可见具有特点双环“晕环征”，即内环为囊壁水肿黏膜和黏液组成的低密度环，外环为完整的肌层构成的高密度环。主要用于了解囊肿大小、范围、毗邻关系等。在诊断意义上，CT不如EUS-FNA。

虽然成人胃重复畸形少见，术前很难与左肾上腺囊肿进行鉴别，尤其当包块在影像资料方面缺少特异性表现的时候与左肾上腺区占位的鉴别诊断更加困难，给手术者术中带来极大的困难和挑战。肾上腺囊肿目前分类较多，常用的分类为肿瘤性囊肿和非肿瘤性囊肿，肿瘤性肾上腺囊肿多因肿瘤性质表现出典型的临床症状，如皮质醇症表现为典型向心性肥胖及宽大紫纹；醛固酮症表现为高血压、低血钾，而儿茶酚胺症则是典型的阵发性高血压。CT可见囊壁不均匀，其内液性暗区信号混杂，可见钙化。非肿瘤性肾上腺囊肿按病理类型可分为4类：内皮性囊肿、出血性或假性囊肿、上皮性囊肿、寄生虫性囊肿，其中内皮囊肿包含2种亚型：淋巴管瘤和血管瘤囊肿^[10]。非肿瘤性肾上腺囊肿可无临床症状，CT可发现圆形或类圆形的囊性肿物，内可见均匀液性暗区，边界光滑，囊壁多薄且均匀，病变时间越长越容易见囊内或囊壁钙化。

结合以上所述及本例患者特点，我们分析误诊原因可能有：(1)胃重复畸形临床不多见，且为先天性疾病，病例多好发于婴幼儿，成人病例更为罕见；(2)临床表现缺乏特异性，且病灶多与周围组织粘连导致CT难以鉴别其来源，且本例患者缺乏CT下具有特点的双环“晕环征”，可能与本例囊肿较大，导致囊壁变薄，致内层与囊液分界不清。增强CT见肾上腺囊肿多见而胃重复畸形少见的囊壁钙化。(3)文献推荐的一线诊断方法EUS-FNA未能普及。

2.4 治疗 该病虽多为良性病变，但不乏恶变的报道^[11-13]。故目前认为，手术切除仍是首要治疗选择。但若病灶与胃粘连紧密难以分离，手术中是要完整切除病灶还是为了保护脏器功能减小切除范围，仍需大量病例分析来进一步评估治疗方案。

参考文献

- [1] Macpherson R I. Gastrointestinal tract duplications: clinical, pathologic, etiologic, and radiologic considerations [J]. Radiographics, 1993, 13 (5): 1063.
- [2] Bentley JF, Smith JR. Developmental posterior enteric remnants and spinal malformations: the split notochord syndrome [J]. Arch Dis Child, 1960, 35: 76-86.
- [3] Gerwig WH Jr. Diverticula and other mucosal-lined and pathologic out-pouchings of the gastro-intestinal tract [J]. Am J Surg, 1947, 74 (4): 462-469.
- [4] Ricketts R R. Congenital duplication of the stomach: case report and review of the English literature [J]. Journal of Pediatric Surgery, 1985, 20 (2): 193-193.
- [5] Kremer RM, Lepoff RB, Izant RJ. Duplication of the stomach [J]. Pediatr Surg, 1970, 5 (3): 360-364.
- [6] Sinha A, Salujia SS, Gamanagatti S. Gastric duplication cyst with macroscopic serosal heterotopic pancreas [J]. JOP, 2010, 1: 470-473.
- [7] Malekhosseini SA, Moradian F. Gastric duplication cyst in a man presenting with elevated liver enzymes and icterus [J]. Iran J Med Sci, 2014, 39 (2): 228-231.
- [8] Rowling JT. Some observations on gastric cysts [J]. Br J Surg, 1959, 46 (199): 441-445.
- [9] Eloubeidi M A, Cohn M, Cerfolio R J, et al. Endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration in the diagnosis of foregut duplication cysts: the value of demonstrating detached ciliary tufts in cyst fluid [J]. Cancer Cytopathology, 2010, 102 (4).
- [10] Lattin GE Jr, Sturgill ED, Tujo CA, et al. From the radiologic pathology archives: adrenal tumors and tumor-like conditions in the adult: radiologic-pathologic correlation [J]. Radiographics, 2014, 34 (3): 805-829.
- [11] Ahmed M, Liyanaarachchi K S, Preston S R, et al. Sarcomatoid carcinoma arising in a gastric duplication cyst [J]. ACG Case Reports Journal, 2021, 8 (5): e00584.
- [12] Kuraoka K, Nakayama H, Kagawa T, et al. Adenocarcinoma arising from a gastric duplication cyst with invasion to the stomach: a case report with literature review [J]. Journal of Clinical Pathology, 2004 (4).
- [13] Konishi Y, Minagawa N, Homma S, et al. Gastric adenocarcinoma arising from a gastric duplication cyst [J]. Nihon Rinsho Geka Gakkai Zasshi (Journal of Japan Surgical Association), 2014, 75 (5): 1276-1281.

(收稿日期：2023-01-12)
(校对编辑：韩敏求)