

· 短篇报道 ·

孤立性肺毛细血管瘤1例报道

吴德红* 度亚鑫 刘桂花 虞思润 程 秀

十堰市太和医院医学影像中心 (湖北十堰 442000)

通讯作者: 吴德红, 女, 主任医师, 主要研究方向: 儿科影像等疾病的影像诊断。E-mail: wdhsyth@163.com

【关键词】 毛细血管; 诊断; 肺肿瘤; 孤立性肺毛细血管瘤

【中图分类号】 R732.2+3; R44

【文献标识码】 D

DOI:10.3969/j.issn.1672-5131.2024.08.061

Solitary Pulmonary Capillary Hemangioma: One Case Report

WU De-hong*, TUO Ya-xin, LIU Gui-hua, YU Si-run, CHENG Xiu.

Medical Imaging Center, Taihe Hospital, Shiyan 442000, Hubei Province, China

Keywords: Capillaries; Diagnosis; Lung Neoplasms; Solitary Pulmonary Capillary Hemangioma

孤立性肺毛细血管瘤(solitary pulmonary capillary hemangioma, SPCH)是一种罕见的肺良性肿瘤^[1],影像学对该病报道较少,本文收集一例经病理证实的孤立性肺毛细血管瘤,并结合文献复习,现报道如下。

女,42岁,发现左下肺结节5月。既往身体健康,偶有咳嗽,无咳痰。胸部CT平扫(图1A-1C)示左肺下叶外基底段混合磨玻璃密度结节,大小约0.8cm×1.0cm,边界清晰,MSCT薄层多平面重组(multi-planner reconstruction, MPR)显示邻近肺支气管、血管束走行规则,毗邻小叶肺动脉无牵拉、纠集。因患者诊疗随访过程中情绪焦虑,要求手术,遂行胸腔镜下左肺下叶肺段切除。术后病理诊断:(左肺下叶)肺毛细血管瘤,与影像科

医生共同阅CT片,最终诊断为孤立性肺毛细血管瘤,免疫组化CD31、CD34、ERG均呈阳性反应。

讨论:SPCH是由Fugo等^[2]于2006年首次提出,把它作为一种独立的良性毛细血管增生性病变,并将其与肺毛细血管瘤病(pulmonary capillary hemangiomatosis, PCH)区分开。SPCH与PCH两者临床表现区别较大,前者常无症状,后者常表现活动后气促、呼吸困难。影像学上SPCH表现为孤立性病变,PCH表现为肺部弥漫性病变^[3]。组织病理学SPCH表现为肺泡间隔增宽,间隔内薄壁毛细血管密集增生、明显扩张^[4]。血管内皮细胞免疫组化标记物表现为CD31、CD34、ERG均阳性^[5]。本例患者上述免疫组化标记物均为阳性。

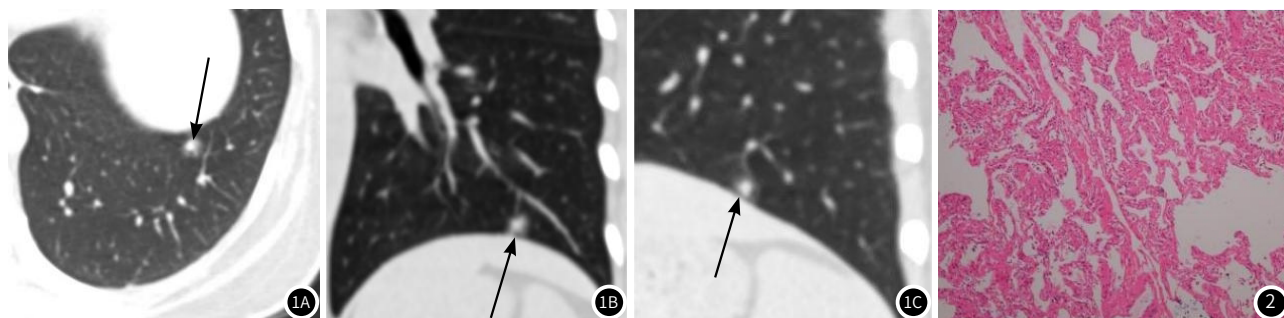


图1A-图1C 1A 胸部CT平扫轴位; 1B 胸部CT平扫MPR冠状位; 1C 胸部CT平扫MPR矢状位,可见左肺下叶外基底段混合磨玻璃密度结节(黑箭标),边界清晰,邻近肺支气管、血管束走行规则。

图2 HE染色(×100),病理镜下示肺泡间隔明显增宽,肺毛细血管数量增多。

SPCH多因行胸部CT检查时偶然发现,本例患者病灶呈混合磨玻璃结节表现,位于下叶近膈面处,难于获得穿刺病理学结果,与早期肺癌鉴别困难,患者无法坚持随访,要求行手术治疗,最终手术切除获得病理结果为SPCH。回顾既往文献,2020年之前PubMed数据库检索到相关文献总共报道40例^[1-2,6-13],2021年国内文献有了首例报道;到2022年为止,国内共有3篇文献报道了12例^[5,14-15],上述文献表明该病在胸部CT上主要表现为肺孤立性结节灶,文献报道52例中,有29例表现为混合性磨玻璃密度结节(占比约56%),15例为纯磨玻璃密度结节(占比约29%),5例实性结节(占比约10%),3例为含囊腔性结节(占比约6%),其中以纯磨玻璃与混合磨玻璃结节占绝大多数(占比44/52,约85%)。由此推测本病CT主要表现为肺内磨玻璃结节,这与组织病理学相关,因为SPCH镜下为肺泡间隔增宽,毛细血管内皮细胞增生,

因此在CT上易呈现为磨玻璃密度,也因此,本病与同样表现为磨玻璃密度结节肺内原位癌、微小浸润型癌在CT上难以通过密度特点相鉴别,要依赖镜下组织学鉴别。本例表现为混合磨玻璃密度结节。文献^[5]也有报导可呈实性结节,可能与肺泡间隔内毛细血管及内皮细胞增生程度相关,当然还需更多病例的CT影像与病理对照观察来证实。由于CT具有高密度分辨率特点,对发现肺内小结节病灶敏感性高,高分辨率薄层CT上可以区分肺内结节密度特点,将结节分为实性、囊腔性、纯磨玻璃密度及混杂磨玻璃密度,但对小结节早期定性特异性受限。同时MSCT功能强大,MSCT薄层重组结合MPR三维重组技术可对病灶进行多角度多方位观察病灶,了解病灶与周围血管、支气管的关系,为手术医师提供明确的定位依据。

综上所述,SPCH在CT影像上表现为肺内孤立的结节,通过

对文献复习及本病例诊断过程,体会到SPCH做为一种独立疾病,在诊断方面影像与病理结合必不可少,病理科医生能通过组织病理学及免疫组化诊断为肺毛细血管瘤,但镜下组织有限,需结合CT检查才能确定肺内病灶为孤立的而非弥漫性病变,只有影像与病理相结合才易于鉴别SPCH与PCH。

参考文献

- [1] Hashimoto Hirotsugu, Kurata Atsushi, Fujiwara Masachika, et al. Solitary pulmonary capillary hemangioma of adult cases: clinicopathologic characteristics as an unrecognized entity[J]. The American Journal of Surgical Pathology, 2016, 40(10): 1380-1389.
- [2] Fugo K, Matsuno Y, Okamoto K, et al. Solitary capillary hemangioma of the lung: report of 2 resected cases detected by high-resolution CT[J]. Am J Surg Pathol, 2006, 30(6): 750-753.
- [3] 赵勤华, 吴文汇, 官素岗, 等. 肺静脉闭塞病及肺毛细血管瘤病的临床和影像学特点[J]. 中华结核和呼吸杂志, 2018, 41(1): 41-46.
- [4] Zhao J, Shao J, Zhu L, et al. Solitary pulmonary capillary hemangioma: clinicopathologic and radiologic characteristics of nine surgically resected cases[J]. Pathol Res Pract, 214(11): 1885-1891.
- [5] 周逸鸣, 戴洁, 徐小雄, 等. 孤立性肺毛细血管瘤10例临床分析[J]. 中华外科杂志, 2021, 59(1): 66-70.
- [6] Taniguchi D, Taniguchi H, Sano I, et al. Solitary capillary hemangioma in the lung: report of a case[J]. Kyobu Geka, 2010, 63(5): 423-425.
- [7] Hashimoto Hirotsugu, Yanagiya Masahiro, Suzuki Yoshio, et al. A case of solitary pulmonary capillary hemangioma indicating true gross appearance[J]. Pathology International, 2017, 67(6): 322-323.
- [8] Sakaguchi Yasuto, Isowa Noritaka, Tokuyasu Hirokazu, et al. A resected case of solitary pulmonary capillary hemangioma showing pure ground glass opacity[J]. Annals of Thoracic and Cardiovascular Surgery, 2014, 20(Suppl): 578-581.
- [9] Isaka Tetsuya, Yokose Tomoyuki, Ito Hiroyuki, et al. Case of solitary pulmonary capillary hemangioma: pathological features based on frozen section analysis[J]. Pathology International, 2013, 63(12): 615-618.
- [10] Matsushita Mina, Kawakami Satoshi, Matsushita Tsuyoshi, et al. Changes in CT density of solitary capillary hemangioma of the lung upon varying patient position[J]. Japanese Journal of Radiology, 2012, 30(9): 772-776.
- [11] Zhu Yanmei, Qu Ning, Sun Lili, et al. Solitary pulmonary capillary hemangioma presents as ground glass opacity on computed tomography indicating adenocarcinoma in situ/atypical adenomatous hyperplasia: a case report[J]. Biomed Rep, 2017, 7(6): 515-519.
- [12] Hsieh M S, Lee Y H, Lin M W, et al. Solitary pulmonary capillary hemangioma: an under-recognized pulmonary lesion mimicking early lung cancer on computed tomography images[J]. Lung Cancer, 2018, 124(10): 227-232.
- [13] Zhao J, Shao J, Zhu L, et al. Solitary pulmonary capillary hemangioma: Clinicopathologic and radiologic characteristics of nine surgically resected cases[J]. Pathology Res Pract, 2018, 214(11): 1885-1891.
- [14] 吴进超, 徐小雄, 谢惠康, 等. 孤立性肺毛细血管瘤一例[J]. 中华结核和呼吸杂志, 2021, 44(4): 372-374.
- [15] 谭展玉, 李尚明, 王平. 肺毛细血管瘤1例[J]. 中华解剖与临床杂志, 2022, 27(1): 50-51.

(收稿日期: 2024-01-20)

(校对编辑: 姚丽娜)

· 短篇报道 ·

盆腔罕见成脂型孤立性纤维性肿瘤一例

王小雷 徐东亮 李曼曼 哈传传*

太和县人民医院影像科(安徽 阜阳 236600)

通讯作者: 哈传传, 男, 副主任医师, 主要研究方向: 颅脑及盆腔MRI诊断。E-mail: 67693422@qq.com

【关键词】盆腔; 磁共振成像; 孤立性纤维瘤

【中图分类号】R445.2

【文献标识码】D

DOI:10.3969/j.issn.1672-5131.2024.08.062

A Case of Rare Lipogenic Solitary Fibrous Tumor of the Pelvis

WANG Xiao-lei, XU Dong-liang, LI Man-man, HA Chuan-chuan*

Department of Imaging, Taihe Country People's Hospital, Fuyang 236600, Anhui Province, China

Keywords: Pelvis; Magnetic Resonance Imaging; Solitary Fibrous Tumor

患者, 女, 78岁, 尿频两月余, 8天前于当地卫生院进行彩超检查, 提示: 盆腔内囊性包块。后在我院进行盆腔MRI检查提示: 盆腔偏右侧多房囊性占位, 体积较大, 分隔及实性成分较多, 内可见出血, 考虑右侧卵巢交界性粘液性囊腺瘤或囊腺癌可能。实验室检查: 癌胚抗原、CA199及CA125均未见明显异常。完善相关检查后全麻下行“经腹腹膜后肿瘤切除术+全子宫+双附件切除术+右侧输尿管部分切除术+右侧输尿管再植术+右侧输尿管支架植入术”, 术后病理结果提示盆腔梭形细胞肿瘤, 有异型, 可见核分裂象, 局部伴出血, 倾向间叶源性肿瘤, 建议免疫组化; 右侧输尿管局部镜检外膜可见肿瘤组织, 断端切缘未见明显异常, 后经上海阿克曼医学检验所免疫组化提示: 符合脂肪瘤样(“成脂型”)孤立性纤维性肿瘤。免疫组化结果:ER(-), PR(-), Desmin(部分+), SMA(-), Caldesmon(-), CD(-), P53(野生型表达), P16(斑片状), CD34(血管+), FH(+), S-100(-), Ki-67(+, 约5%), Calretinin(-), Inhibin a(-), CD117(-), DOG1(-),

D2-40(-), CK5/6(-), STAT6(核+), H3K27Me3(+), Bcl-2(+), CD99(+).

讨论: 孤立性纤维瘤(solitary fibrous tumor, SFT)起源于间叶组织^[1], 在临床上较为少见, 好发于中、老年人, 性别上无明显差异^[2], 胸膜是SFT最常见的好发部位^[3-4], 但发生在腹盆腔较为少见, 成脂型孤立性纤维瘤更为罕见。SFT可以含成熟的脂肪细胞, 以前被称为脂肪瘤样孤立性纤维瘤, 但现在被认为是SFT的脂肪形成性变异^[5]。

SFT多为类圆形或分叶状, 边界清晰, 在显微镜下可见大量梭形细胞疏密交替排列, 其内可见散在分布的纤维基质及“鹿角样”薄壁间质血管^[5]。免疫组化(immunohistochemical, IHC)结果肿瘤细胞对广谱角蛋白、CKAE1/AE3、CK5/6、34 beta E12、MNFI16、CAM5.2、CK、CK19、EMA和p63均为阴性, 基本排除了低级别化生性癌。肿瘤细胞对波形蛋白、CD34、STAT-6呈强烈和弥漫性免疫阳性, 这种IHC特征有利于诊断成脂型孤立性