

论 著

探讨多模态影像学对脾脏炎性肌纤维母细胞瘤的诊断价值*

王 嫚¹ 沈中原² 李金民³张 聪⁴ 阚 宏^{2,*}

1.安徽医科大学附属阜阳医院核医学科

2.安徽医科大学附属阜阳医院放射科

3.安徽医科大学附属阜阳医院超声科

4.安徽医科大学附属阜阳医院病理科

(安徽 阜阳 236000)

【摘要】目的 为了提高脾脏炎性肌纤维母细胞瘤的诊断水平，探讨多模态影像学的价值。方法 回顾分析本院1例成人脾炎性肌纤维母细胞瘤(inflammatory pseudotumor of spleen, SIMT)患者的影像资料，包括彩色超声、CT平扫及增强、MRI平扫，并复习文献。结果 脾脏内数枚肿块，以低回声为主，回声不均，边界尚清，形态规整，内见少许血流信号。CT平扫为等密度，其内见小片状低密度区；增强后呈轻度至中度不均匀强化。MRI表现：T₁WI上低或等信号，T₂WI序列及T₂WI抑脂序列为等及高信号，病灶周围见完整包膜，DWI图为等及高信号，信号不均匀。病理学及免疫组化结果为SIMT；EB病毒(+)。结论 SIMT临床表现缺乏特异性，最终需病理学确诊。多模态影像学检查对脾炎性肌纤维母细胞瘤有很高的诊断和鉴别诊断价值。

【关键词】超声检查；体层摄影术；X线计算机；磁共振成像；脾脏；炎性肌纤维母细胞瘤

【中图分类号】R445.3；R445.2

【文献标识码】A

【基金项目】安徽省自然科学基金

(1808085MH283)；

2024年度安徽省高校科学研究项目

(2024AH050736)

DOI:10.3969/j.issn.1672-5131.2024.11.035

To Evaluate the Value of Multimodal Imaging in the Diagnosis of Splenic Inflammatory Myofibroblastoma*

WANG Man¹, SHEN Zhong-yuan², LI Jin-min³, ZHANG Cong⁴, KAN Hong^{2,*}.

1.Department of Nuclear Medicine, Fuyang Hospital Affiliated to Anhui Medical University, Fuyang 236000, Anhui Province, China

2.Department of Radiology, Fuyang Hospital Affiliated to Anhui Medical University, Fuyang 236000, Anhui Province, China

3.Department of Ultrasound, Fuyang Hospital Affiliated to Anhui Medical University, Fuyang 236000, Anhui Province, China

4.Department of Pathology, Fuyang Hospital Affiliated to Anhui Medical University, Fuyang 236000, Anhui Province, China

ABSTRACT

Objective In order to improve the diagnostic level of inflammatory myofibroblastoma of spleen, the value of multimodal imaging was discussed. **Methods** The imaging data of 1 case of adult inflammatory pseudotumor of spleen (SIMT) in our hospital were retrospectively analyzed, including color ultrasound, CT plain and enhanced scan, MRI plain scan, and the literature was reviewed. **Result** There were several masses in the spleen, mainly low echo, uneven echo, clear boundary, regular shape, and a few blood flow signals. CT plain scan showed equal density, and small flake areas of low density were found in it. The enhancement showed mild to moderate uneven enhancement. MRI findings: low or equal signal on T₁WI, slightly high signal on T₂WI and T₂WI lipid suppression sequences, high signal on DWI, even signal, no complete capsule around the lesion. The pathological and immunohistochemical results were SIMT. Epstein Barr virus (+). MRI findings: low or isosignal on T₁WI, isohigh signal on T₂WI and T₂WI liposuppressive sequences, complete capsule around the lesion, isohigh signal on DWI, uneven signal. The pathological and immunohistochemical results were SIMT. In situ hybridization: Epstein-Barr virus (+). **Conclusion** The clinical manifestations of SIMT are lack of specificity and ultimately need to be confirmed by pathology. Multimodal imaging is valuable in the diagnosis and differential diagnosis of splenic inflammatory myofibroblastoma.

Keywords: Ultrasonic Examination; Omography; X-ray Computer; Magnetic Resonance Imaging; Spleen; Inflammatory Myofibroblastoma

炎性假瘤最早于1939年由H.Brunn博士更名为炎性肌纤维母细胞瘤(inflammatory myofibroblastic tumor, IMT)，被认为是一种间质来源的罕见肿瘤^[1]。2002年起，世界卫生组织(world health organization, WHO)将IMT归类为间叶性真性肿瘤，且具有低度恶性潜能^[2-3]；可发生于全身各个部位均可发生，以肺为最多见^[4]，但原发IMT在淋巴结系统中十分少见^[5]。脾脏炎性肌纤维母细胞(inflammatory pseudotumor of spleen, SIMT)，以往称脾脏炎性假瘤，于1984年由Cotelingam和Jaffe^[6]首次报道。SIMT多为单个的大肿块，极少数为多发病灶^[7]。SIMT临床症状并不典型，患者常因出现腹部不适、发热、体重减轻等非特异性症状而发现。国内外SIMT报告极少，临床上常被误诊为淋巴瘤、血管瘤、错构瘤，甚至血管肉瘤等。现结合1例成人脾脏多发炎性肌纤维母细胞瘤患者的临床资料、多模态影像学表现及病理，旨在提高对本病影像学的认识水平，减少本病的误诊、误治。

1 资料与方法

1.1 临床资料 女性，41岁，反复疲乏无力，外院提示慢性贫血1年多。超声检查提示脾内实性恶性肿块，恶性淋巴瘤？请结合临床。病程中无发热等一般性炎症的表现。触诊：颈部、腋窝、腹股沟内多枚中等大小淋巴结。

主要检查结果：中度贫血，血红蛋白64 g/L、血清铁3.0 μmol/L降低。血轻链K、血轻链L稍有上升。EB病毒衣壳抗原、核抗原IgG阳性。血β₂微球蛋白含量略有增加。轻微上升。糖类抗原125、199分别为51.00 IU/mL、77.61 IU/mL，超过正常高值。

1.2 影像学检查 超声设备西门子 日立 Aloka 70，GE Vivid E9。CT扫描机型为GE Optima CT 680，128层螺旋CT，腹部模式，电压120kV，自动管电流，层厚、层距5mm，重建1.25mm，增强扫描，对比剂：碘帕醇 370mgI/mL，剂量：每公斤1.5 mL，注射速率2.5mL/s。MRI使用西门子3.0 VIDA MR仪，行常规横轴面自旋回波T₁WI、T₂WI、T₂WI抑脂及DWI序列。

1.3 病理学检查 常规消毒铺巾，在局麻下通过超声引导下脾脏低回声肿块行穿刺活检，采用18G活检针，取白色组织3条，送病理，术顺。

2 结 果

2.1 影像学表现 本例SIMT为多发病灶。

【第一作者】王 嫚，女，主治医师，主要研究方向：影像学诊断。E-mail: 501935851@qq.com

【通讯作者】阚 宏，男，主任医师，主要研究方向：放射诊断。Email: fnkhdr@163.com

超声：脾脏体积增大，表面光滑，内部回声不均匀，可见数个不均质低回声，病变较大者71.0 mm×63.1mm，边界清晰，形态规整，CDFI：内可见带状血流信号。

脾脏内数个不均质低回声灶，边界清晰，病变内见条状血流信号。

另超声检查提示：双侧颈部、左侧锁骨上窝、双侧腋下及双侧腹股沟可见增大淋巴结，随访。宫颈肌瘤，子宫腺肌症。

第二天，进一步接受CT平扫和增强检查，如图2。

脾脏体积增大，脾内最大病灶位于脾脏内上缘，大小5.97cm×7.99cm，最小病灶位于脾脏内下缘，大小2.34cm×2.45cm。

诊断印象：脾脏增大，脾脏多发占位，考虑淋巴瘤可能，建议结合病理确诊。

15个月，复查MRI平扫。

2.2 病理 (脾脏穿刺组织)考虑为炎性肌纤维母细胞瘤。免疫组化结果：SMA(+，少数细胞)、Desmin(-)、ALK(Ventana，克隆号D5F3)。肿瘤细胞(-)、阳性对照(+)、CD3(T细胞+)、CD20(B细胞+)、PAX-5(B细胞+)、CD21(少数+)、CD4(部分+)、CD8(部分+)、CD68(组织细胞+)、KI-67(+，约10%细胞)；原位杂交结果：EBER-ISH(+)，如图4。

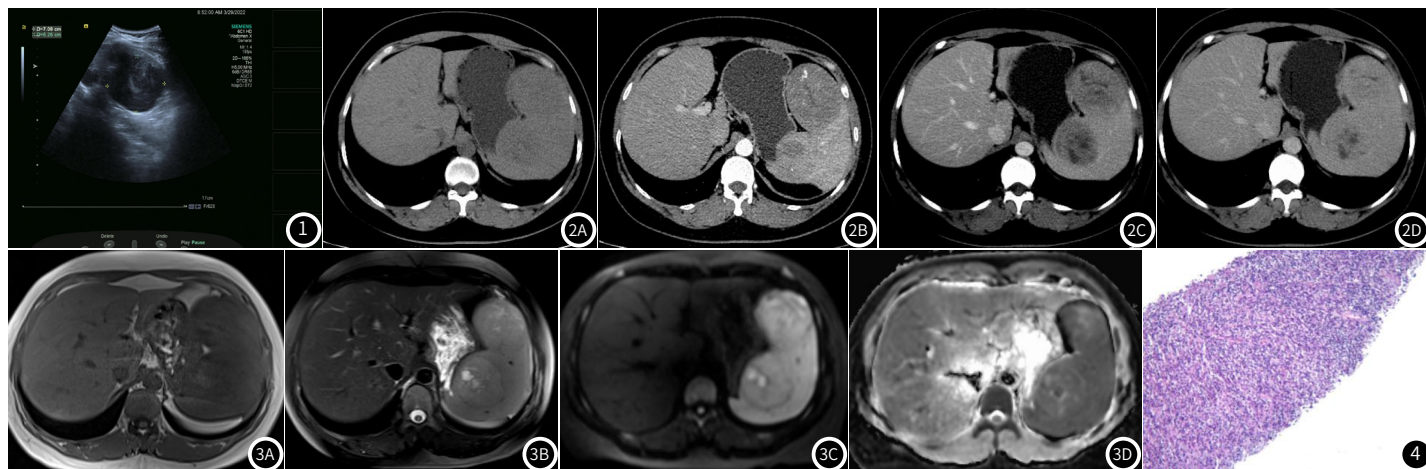


图1 SIMT的超声表现。

图2A-图2D SIMT的CT表现：图2A CT平扫见脾内多发团块状等或低密度，边界不清，CT值约33Hu；图2B 增强动脉期病灶较邻近脾脏实质增强程度低强化程度低，且不均匀，CT值约59Hu-85Hu，边缘见迂曲细小动脉供血，内部见小片状低强化区；图2C 门脉期病灶实性部分强化程度稍增强，CT值71Hu，低强化区范围增大、清晰，CT值36Hu；图2D 延迟期病变内低强化区范围变小，实性部分强化程度近似脾脏，CT值约44Hu-78Hu。

图3A-图3D SIMT的MRI表现：图3A 脾内多发占位，呈团块状，T₁WI呈略低或等信号，界限模糊；图3B T₂WI病灶为等及高信号，边缘见完整包膜；图3C DWI序列为等及稍高信号，信号不均匀；图3D ADC图上呈等及略高信号。

图4 (脾脏穿刺组织)HE染色图片(×100)。

3 讨论

3.1 SIMT的发生机理 脾脏炎性肌纤维母细胞瘤是极其罕见的脾脏原发肿瘤，国内发病率约1/(610~1700)万^[7-8]，文献中绝大多数为个案报道。2002年WHO根据病理学特征将其定义一种间叶性肿瘤，由分化的肌纤维母细胞性梭形细胞组成，伴有大量浆细胞和(或)淋巴细胞^[4]。IMT以肺和大网膜较常见，原发于脾脏者极为罕见^[9]。临床上，SIMT症状缺乏特异性，主要取决于发病部位，有些发生于腹腔的SIMT常因上腹不适、贫血等症状或偶然的体检发现^[7-8]。目前SIMT发病机制尚不明确，可能与手术、创伤、HIV、EB病毒/细菌等微生物感染等众多因素有关^[10]。

部分文献报道该病与机体损伤或感染后局部修复异常或激素治疗或放化疗等有关。有研究^[11]指出本病影像表现有特征性，但尚不明确与其病理分型、预后的相关性。确诊SIMT要靠病理学。SIMT病理上多呈体积较大的单发肿块，极少数可表现为多发大小不等的病灶^[7]。张亚平等^[12]报道一名老年男性慢性贫血，右肺及邻近胸壁、脾脏、左后腹壁及左肾后间隙出现范围大、多灶的炎性肌纤维母细胞瘤，非常罕见。大部分文献报道SIMT与性别无明显相关性，亦有少部分报道女性发病率更高^[13]。少数脾脏炎性肌纤维母细胞瘤在根治切除术后可复发，极少数可转移，但是腹腔内的IMT出现复发率相对其他部位稍高，故术后需长期随访^[14-16]。本例SIMT脾脏未经切除，随访15个月，肿块未见明显增大或转移。

3.2 SIMT的影像学表现 SIMT在超声检查表现为实性肿块或者混合组织结构回声，界限清楚或呈浸润性，彩色多普勒血流显像见病变内少许血流通过。超声造影技术能了解脾脏病变的血流灌注特性，是超声诊断脾脏肿瘤的一种新方法，但SIMT有多种强化模式，不具特征性，仍需结合其他影像学手段和临床资料来综合考虑。廖铃，等^[17]报道1例脾脏IMT误诊为恶性肿瘤，增强模式为实

质期造影剂快速降低。可见，当下超声检查技术对SIMT的诊断和鉴别诊断价值仍有待提高。

此例SIMT在CT平扫为等或略低密度，中心有小片状低密度，界限模糊；增强后呈现不均匀轻中度渐进式强化，动脉期边缘见迂曲的血管影，中心坏死区未强化，边界较清晰，与报道一致^[18-20]。国内外报道^[14-15,21]部分体积巨大者病灶内部偶见出血、坏死，但未见周边侵犯、淋巴结转移及腹腔积液等常见恶性肿瘤表现。孙海涛等^[22]认同增强扫描可反应病灶的血供及病理特点，是因肿瘤强化主要与肿瘤间质丰富的增生毛细血管以及炎性改变有关。柯俊等^[21]报道61岁男性的单发SIMT，实性伴钙化，CT增强呈轻中度渐进性强化，被误诊为脾血管瘤。

MRI的突出优势可分析软组织成分，但临床上的应用仍不及超声和CT。邓琦等^[23]认为，当脾内出现单发占位，近似类圆形，主要为实性成分，T₂WI呈现明显低信号，CT或MRI增强扫描时病灶实质部分轻中度渐进性强化，中央坏死部分呈地图样，边缘见包膜环绕，应该考虑SIMT的可能性。周兴顺，等^[24]报道脾脏肿块CT和MRI增强表现验证了这一说法，但密度或信号均匀^[23]。谢军伟，等^[25]文中指出，少数肿瘤可出现坏死，点状或大片，或有钙化和骨化。

本例患者因贫血明确，病程较长，超声检查提示双侧颈部、左侧锁骨上窝、双侧腋窝及双侧腹股沟有较多中小淋巴结，误以为是血液系统疾病，优先考虑淋巴瘤。仔细分析，CT强化方式和典型淋巴瘤是不相符的。本病例脾脏病灶在MRI上的表现与王唯伟等^[26]所报道的类似，T₂WI像上见病灶内较高信号，如若这次MRI检查首诊，是很难与脾脏其他肿瘤样病变相鉴别的。

3.3 SIMT的鉴别诊断 (1)淋巴瘤：典型淋巴瘤CT平扫瘤体呈较均

匀的稍低密度, 体积较大, 增强强化程度较弱且均匀, 延迟期呈低密度。MRI T₁WI信号强度与T₂WI信号强度差别不大, 少数较大病灶内部可见坏死区, 有时不易与SIMT区别开。(2)血管瘤: 临床上比较常见, 直径一般不大于4.0cm; 增强呈明显的持续性、向心性强化, 瘤体较小时, 延迟期可完全强化。(3)错构瘤: CT平扫密度近似正常脾脏, 增强强化方式多样, 特征性表现是瘤体内见正常脾脏血管分支。(4)脾脏血管瘤: 单发或多发边缘模糊的类圆形或不规则低密度影, 可伴有囊变、坏死、纤维化或网格状钙化, 早期可发生血行转移, 增强扫描呈渐进性强化, 静脉期和延迟期强化程度增加、范围扩大。

总的来说, SIMT的误诊率较高, 分析原因, 可能与SIMT单一的某种检查方式不具有特征性, 及CT或MRI强化方式不固定所造成, 因此综合运用多种影像学手段, 会提高诊断的准确性。

参考文献

- [1]Yagnik V D. ALK 1 negative inflammatory myofibroblastic tumor of the ileum: a rare cause of ileocecal intussusception[J]. The Surgery Journal, 2020, 6 (2).
- [2]Hameed T, Singh M, Nizam A, et al. Acute intestinal obstruction due to ileocolic intussusception in an adult; a rare presentation of inflammatory myofibroblastic tumor[J]. American Journal of Case Reports, 2020, 2.
- [3]岑峰, 钟金丽, 张锋玫, 等. 非典型肺炎性肌纤维母细胞瘤高分辨率CT表现及病理分析[J]. 广西医学, 2018, 40 (23): 2849-2851, 2857.
- [4]Diego S, Fausto T, Marialuisa F, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the orbit: a clinico-pathological study of 25 cases[J]. Saudi Journal of Ophthalmology, 2018, 32 (1): 33-39.
- [5]Ma C, Lu J, Chen G, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor mimicking lymphoma on 18F-FDG PET/CT. Report of a case and review of the literature[J]. Hellenic Journal of Nuclear Medicine, 2018, 21 (1).
- [6]Cotelingam JD, Jaffe ES. Inflammatory pseudotumor of the spleen[J]. The American Journal of Surgical Pathology, 1984.
- [7]Wang B, Xu X, Li Y C. Inflammatory myofibroblastic tumor of the spleen: a case report and review of the literature[J]. International Journal of Clinical and Experimental Pathology, 2019, 12 (5).
- [8]何俊闯, 邱法波, 张晓峰, 等. 中国近25年脾脏炎性肌纤维母细胞瘤的流行病学特征及诊治经验[J]. 中国现代普通外科进展, 2012, 15 (3): 183-188.
- [9]Jayarajah U, Bulathsinghala R P, Handagala D, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the esophagus presenting with hematemesis and melaena: a case report and review of literature[J]. Clinical Case Reports, 2018, 6 (1): 82-85.

- [10]Atsumi Y, Murakawa M, Yamaoku K, et al. [A case of primary splenic inflammatory myofibroblastic tumor] [J]. G Gan To Kagaku Ryoho, 2016, 43 (12): 2268-2270.
- [11]Chen M, Zhang L, Cao G, et al. Partial response to chemotherapy in a patient with retroperitoneal inflammatory myofibroblastic tumor[J]. Molecular & Clinical Oncology, 2016, 5 (4): 463-466.
- [12]李学伟, 曹尚超, 张亚平, 等. 单发多部位炎性肌纤维母细胞瘤1例[J]. 河北医药, 2020, 42 (15): 2399-2400.
- [13]Valde P, Garcia Bernardo C, Granero P, et al. Inflammatory pseudotumor of spleen: a case report[J]. Int J Surg Case Rep, 2015, 7C: 145-148.
- [14]赵军杰, 马周鹏, 林观生, 等. 脾脏炎性肌纤维母细胞瘤二例诊治分析[J]. 肝胆胰外科杂志, 2021, 33 (9): 558-559, 562.
- [15]Ag A, Ss A, Am B, et al. Recurrent infantile inflammatory myofibroblastic tumor of mesentery--Case report and review of imaging findings[J]. Radiology Case Reports, 2021, 16 (3): 504-510.
- [16]Khatri A, Agrawal A, Sikachi R R, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the lung[J]. Advances in Respiratory Medicine, 2018, 86 (1): 27-35.
- [17]廖铃, 周静, 李明星. 脾炎性肌纤维母细胞瘤合并卵巢畸胎瘤1例[J]. 中国超声医学杂志, 2019 (9): 862.
- [18]湛丹丹, 魏新华, 杨蕊梦, 等. 腹腔脏器炎性肌纤维母细胞瘤的CT表现[J]. 中国CT和MRI杂志, 2020, 18 (9): 162-165.
- [19]方仁杰. 脾脏炎性肌纤维母细胞瘤1例[J]. 安徽医学, 2019, 40 (7): 837-838.
- [20]薛正和, 潘利周, 刘稳芳. 肺炎性肌纤维母细胞瘤的影像学表现[J]. 医学影像学杂志, 2020, 30 (1): 65-68.
- [21]柯俊, 戴玲珍. 肺炎性肌纤维母细胞瘤CT与MRI表现与病理对照分析[J]. 医学影像学杂志, 2021, 31 (6): 971-975.
- [22]孙海涛, 刘镭, 王艳秋, 等. 腹部炎性肌纤维母细胞瘤以病理为基础的影像学特征[J]. 放射学实践, 2017, 32 (2): 162-166.
- [23]邓琦, 李勤祥, 杨冠英. 脾脏炎性肌纤维母细胞瘤的影像学表现[J]. 中国中西医结合影像学杂志, 2019, 17 (5): 525-527.
- [24]周兴顺, 张巧玲. 脾脏炎性肌纤维母细胞瘤1例[J]. 医学影像学杂志, 2019, 29 (8): 1291, 1295.
- [25]谢军伟, 毛宇强, 王京利, 等. 炎性肌纤维母细胞瘤诊断和治疗的研究进展[J]. 现代肿瘤医学, 2019, 27 (21): 3927-3930.
- [26]王唯伟, 董洋, 王绍武, 等. 脾脏炎性肌纤维母细胞瘤1例[J]. 中国医学影像技术, 2016 (4): 577-577.

(收稿日期: 2023-05-29) (校对编辑: 江丽华)