

· 短篇 ·

儿童肺内多发性婴儿血管瘤1例

崔文静 马晓辉*

浙江大学医学院附属儿童医院放射科 (浙江 杭州 310000)

第一作者: 崔文静, 女, 住院医师, 主要研究方向: 儿科影像。E-mail: wenjing.c@zju.edu.cn

通讯作者: 马晓辉, 男, 副主任医师, 主要研究方向: 儿科影像。E-mail: rudra@zju.edu.cn

【关键词】 婴儿血管瘤; 肺; 儿童; 计算机体层成像;

【中图分类号】 R737.11

【文献标识码】 D

DOI:10.3969/j.issn.1672-5131.2025.10.058

One Case: Multiple Pulmonary Infantile Hemangiomas in a Child

CUI Wen-jing, MA Xiao-hui*

Department of Radiology, Children's Hospital of Zhejiang University School of Medicine, Hangzhou 310000, Zhejiang Province, China

Keywords: Infantile Hemangioma; Lung; Children; Computed Tomography

婴儿血管瘤(infantile hemangioma, IH)是婴儿期最常见的良性肿瘤,主要发生在头颈部的皮肤。在呼吸道中并不常见,主要出现在声门下区域,而肺部病变则极为罕见。现报道一例肺内多发性婴儿血管瘤如下。

病例资料: 患儿,男,1岁1个月,因咳嗽2天伴呕吐至当地医院检查,行胸部计算机体层成像(computed tomography, CT)扫描显示两肺多发性肺结节,后转至我院进行进一步评估。入院时,患儿总体健康状况良好,体格检查正常,除双肺听诊呼吸音粗外,未见皮肤病变。实验室检查未见明显异常。腹部超声检查除脾大外均正常。

CT平扫及增强扫描(图1~5): 两肺可见多发大小不等类圆形结节影,边界清,边缘光滑,较大者横截面大小约9.2mm×10.2mm,

平扫平均CT值约43 HU,增强扫描病灶呈不均匀明显向心性强化,动脉期、静脉期及延迟期平均CT值分别为174HU、324HU及171HU。

患儿行胸腔镜下右肺下叶楔形切除术,探查胸腔见右肺各叶表面多颗结节状凸起,于右肺下叶边缘处楔形切取2枚结节送检,镜下所见: 结节与周围肺组织境界较清楚,细胞较丰富,细胞呈上皮样(图6)。免疫组织化学检测: ERG(+), Fli-1(+), D2-40(-), Glut1(+), Synaptophysin(-), Actin(MSA)(+), CD34(+), CD31(+), CD68(-), CK(AE1/AE3)(+), EMA(+), INI1(存在), Ki-67(约5%+), MyoD1(-), SMA(+), TTF-1(+). 结合免疫组化结果,病理学诊断为婴儿血管瘤。

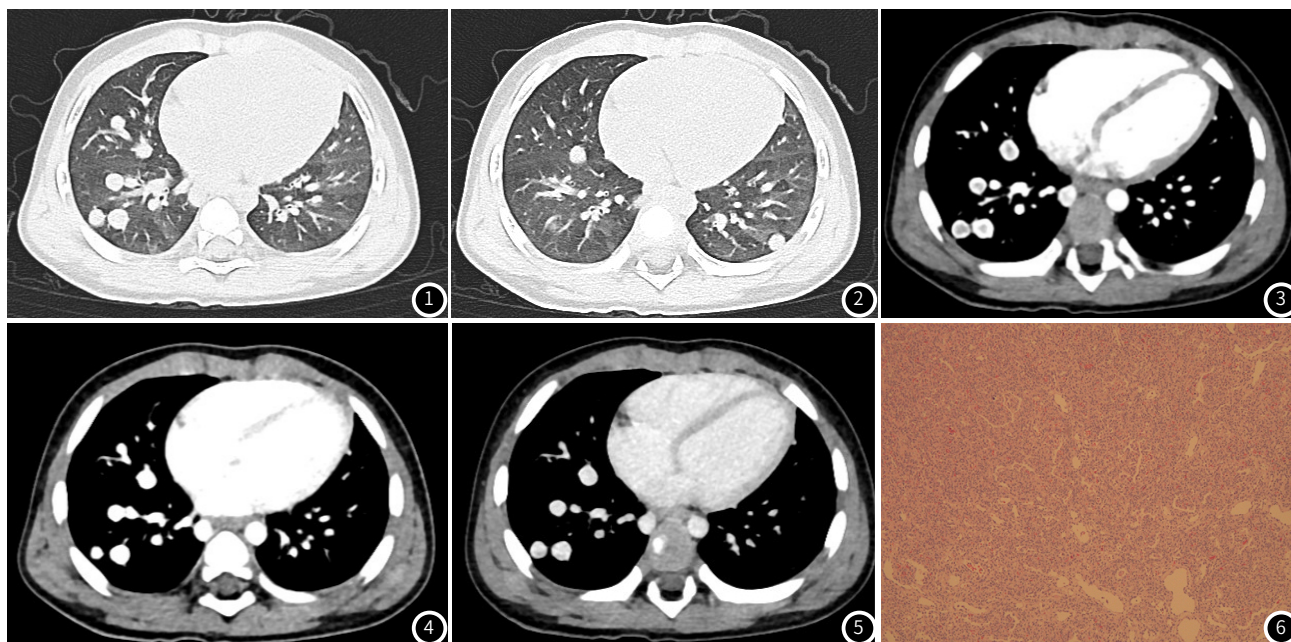


图1、图2 CT平扫轴位示两肺可见多发大小不等类圆形结节影。

图3~图5 CT增强动、静脉期及延迟期轴位扫描示两肺结节可见明显向心性强化。

图6 病理光镜下见肿物与周围肺组织境界较清楚,细胞较丰富,细胞呈上皮样(HE×100)。

讨论：婴儿血管瘤(infantile hemangioma, IH)是一种起源于内皮细胞的良性血管性肿瘤，常见于新生儿早期^[1]，发病率约为4.5%，女性多见^[2]。通常位于皮肤，约60%位于头颈部^[3]，皮肤外的IH罕见。早产、多胎妊娠、高龄产妇、妊娠期糖尿病、先兆子痫和胎盘异常等是IH的重要危险因素，有研究称上述因素导致组织缺氧，进而激活血管生成因子，如血管内皮生长因子，可能与IH的发病有关^[1]，但确切的发病机制目前尚不清楚。

发生在肺实质的IH是极为罕见的，只有少数肺部病例在英文文献中报道^[1,3-6]，而国内尚未有过报道。IH通常表现为实性肿块，孤立或多发，也可有假囊性外观^[1]。临床上可无症状或表现为呼吸窘迫、呼吸困难、喘鸣或咳嗽等^[4]。在没有皮肤受累的情况下，一般较难首先考虑肺部IH的诊断。但IH有一特异性标志物，即其内皮细胞表达抗原Glut-1，它在IH的所有阶段都呈阳性，而在其他血管病变中不表达。这一特性可与这个年龄段发现的其他类型的血管肿瘤和血管畸形进行鉴别诊断^[7]。

目前已有的关于肺实质IH的影像描述非常少，笔者通过该病例及现有文献^[1,3-6]总结肺实质IH的影像学特征如下：肺内IH主要表现为两种类型，即肿块型和结节型。肿块型常单发，直径大于3cm，分叶状或浅分叶状，密度均匀或不均匀，病灶局限，可为实性或囊实混合性，无明显占位效应；结节型常多发或弥漫分布，直径小于3cm，圆形或类圆形，密度均匀或不均匀，边界清楚，钙化少见，多为实性。肺内IH为富血供病变，增强扫描动脉期病灶实性部分从边缘开始强化，多呈环状、结节状，强化明显，有时可见增粗供血动脉。静脉期及延迟期强化由边缘向中心扩展，呈向心性延迟强化。肺内IH的诊断主要依靠影像学检查，单凭CT平扫诊断困难，因此特别强调增强扫描，必要时延时扫描。

影像学上，肿块型病灶需与以下病变相鉴别：①肺叶内型隔离肺，多见于成人，多位于肺下叶后基底段脊柱旁，可表现为囊性、实性或囊实性肿块，存在异常体循环供血动脉是主要鉴别点^[8-9]。②先天性囊腺瘤样畸形，胎儿和新生儿较多见，可由一个或多个大小不等的大囊构成(至少一个囊腔直径3cm以上)，也可由多个直径1cm-2cm的蜂窝状小囊组成，也可表现为实性肿块伴或不伴微囊腔^[10-11]。当表现为囊实混合性肿块时，与IH在影像上表现相似，需结合免疫组化进一步鉴别。③II型胸膜肺母细胞瘤，好发于6岁以下儿童，表现为肺部巨大囊实性占位性病变，增强实性部分明显强化，有时可见明显增粗供血动脉，常可累及邻近肺组织、血管、胸膜和纵隔^[12]，借此可与IH鉴别。结节型病灶需与以下病变相鉴别：①转移瘤，典型表现为双肺散在分布的大小不等的密度均匀的结节，可见“分叶征”、“支气管征”“毛刺征”等典型征象，强化方式一般与原发肿瘤相似^[13]，找到原发肿瘤可与IH鉴别。②粟粒性肺结核，常表现为两肺弥漫分布粟粒状结节影，直径小于2mm，特点是三均匀，即大小、密度、分布均匀^[14-15]，可行结核菌素实验加以鉴别。

IH治疗仍有相当大的争议，20世纪40年代和50年代曾采取放疗，然而研究表明放疗的效果比不治疗更差^[3]。大多数其他已报道的病例都接受了手术切除，但对于多发病灶手术切除并不适用。有文献称普萘洛尔是治疗IH的一线治疗方法^[4]，且在另一个已发表的病例中普萘洛尔也有效^[6]，但关于肺IH对口服普萘洛尔的反应的经验仍很少，需要更多病例的验证。

综上所述，肺婴儿血管瘤极为罕见，可合并其他皮肤或脏器病变。当肺实质内出现单发或多发灶且影像学上表现为向心性延迟强化时要考虑到婴儿血管瘤的可能性，诊断不仅需要结合临床和影像学特征，更关键的是组织病理学及免疫组化特点，Glut-1是其特异性标志物。早期普萘洛尔治疗可能有显著效果，可避免不必要的手术。

参考文献

- [1] Dauge C, Fenouil T, Petit T, et al. Pulmonary infantile hemangioma mimicking a congenital cystic adenomatoid malformation[J]. *Pediatr Dev Pathol*, 2019, 22(5): 480-485.
- [2] L éAUT é-LABR èZE C H J, HOEGER PH. Infantile haemangioma[J]. *Lancet*, 2017, 390(10089): 85-94.
- [3] PANDYA R T V. Giant infantile pulmonary hemangioma[J]. *Pediatr Radiol*, 2010, 40 Suppl 1(s1): S63-567.
- [4] Galdeano F, Herón A, Moreno S, et al. Multiple pulmonary infantile hemangiomas responsive to oral propranolol[J]. *Pediatr Dermatol*, 2021, 38(1): 226-228.
- [5] Siaghani PJ, Chavez C, Anselmo DM, et al. Pulmonary infantile hemangioma presenting as a mass in a premature male infant: a case report focusing on pathological features[J]. *Pediatr Dev Pathol*, 2015, 18(1): 66-70.
- [6] Emiralioğlu N, Oğuz B, Akyüz C, et al. Successful treatment of pulmonary hemangioma with propranolol[J]. *Pediatr Pulmonol*, 2014, 49(8): 829-833.
- [7] DRUT RM D R. Extracutaneous infantile haemangioma is also Glut1 positive[J]. *J Clin Pathol*, 2004, 57(11): 1197-1200.
- [8] 杨世海, 谢伟, 师廷明, 等. 膈疝合并隔离肺1例临床分析[J]. *罕少疾病杂志*, 2017, 24(1): 37-38.
- [9] 陈明旺, 王桂华, 王海林, 等. 螺旋CT增强扫描及血管造影诊断肺隔离症的价值[J]. *中国CT和MRI杂志*, 2006, 4(2): 28-30.
- [10] 宋筱蕾, 李军, 曹庆勇. 成人先天性肺囊性腺瘤样畸形III型CT表现1例[J]. *中国临床医学影像杂志*, 2023, 34(1): 64-65.
- [11] 张婷玉. 小儿先天性肺囊性腺瘤样畸形的CT征象及临床表现分析[J]. *中国CT和MRI杂志*, 2017, 15(6): 50-52.
- [12] 李小兵, 张儒舫, 沈立, 等. 小儿胸膜肺母细胞瘤的诊断与治疗分析[J]. *临床小儿外科杂志*, 2020, 19(2): 166-170.
- [13] 杨林裴, 陈晓燕. 肺转移瘤CT影像学表现及其诊断价值研究[J]. *中国CT和MRI杂志*, 2021, 19(12): 57-58+123.
- [14] 任荣, 程晰, 刘荣荣, 等. 艾滋病合并粟粒性肺结核的CT影像与CD4+T淋巴细胞低下程度的相关分析[J]. *新发传染病电子杂志*, 2021, 6(3): 242-246.
- [15] 彭程, 王立非, 梁芳芳, 等. 比较HIV阳性和HIV阴性患者粟粒型结核CT征象[J]. *罕少疾病杂志*, 2018, 25(4): 14-16, 24.

(收稿日期: 2024-10-04)

(校对编辑: 翁佳鸿、韩敏求)