

• 病例报告 •

颈部巨大血管平滑肌瘤 1 例并文献复习*

周杰¹ 杨希之¹ 王振涛¹

[关键词] 血管平滑肌瘤;头颈部肿瘤;外科手术

doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2019.03.023

[中图分类号] R739.91 [文献标志码] D

Giant angioleiomyoma of the neck: a rare tumor case
and literature review

Summary The patient was admitted of the chief complain "progressive snoring for two years, gradual enlargement of the neck neoplasm for six months". Specific examination indicated that bilateral cervical-mandibular margin to cervical root diffuse apophysis, most notably in the right thyroid plane. Posterior pharyngeal wall underwent an apophysis while no related vein engorgement was noticed. Ultrasound examination indicated that multiple hypoechoic nodules with calcification from posterior thyroid to submandibular. MRI examination indicated bilateral posterior pharyngeal plexus malformation. The patient was first treated with angiography and embolization in the department of interventional and followed by "cervical mass resection" in the department of otorhinolaryngology head and neck surgery. The tumor size was 11 cm×8 cm×3 cm. Histology of the tumor was angioleiomyoma with immunohistochemical results Desmin(+), SMA(+), CD31(-), CD34(+), Ki67(+, 1%), Vimentin(+), D-240(-), p53(-).

Key words angioleiomyoma; head and neck neoplasms; surgical procedures, operative

血管平滑肌瘤(angioleiomyoma, ALM)是一种好发于间叶组织的良性肿瘤,组织来源尚不确定,可能来源于异位的胚胎未分化间叶组织、血管壁内的平滑肌细胞,或兼而有之^[1]。头颈部 ALM 少见,临床表现无特异性,容易误诊^[2-3]。现将我科诊治的 1 例颈部巨大 ALM 报告如下。

1 病例报告

患者,男,27 岁,因打鼾渐加重 2 年,颈部肿物渐增大 6 个月于 2016 年 10 月 19 日就诊于上海某医院,行颈部增强 CT 提示“咽后间隙及右下颈部富血供占位,考虑血管源性病变可能”。11 月 3 日患者就诊于北京某医院,行甲状腺 B 超提示“双侧颈部甲状腺后方至颌下多发低回声结节伴钙化”。11 月 29 日患者再次就诊于上海某三甲医院,行颈部 MRI 检查示“右颈部、双侧咽后静脉畸形可能”(图 1)。12 月 20 日患者在该医院于全身麻醉下行气管切开术+右颈部肿物切取活检+右颈部咽旁肿物硬化剂注射治疗。活检病理“倾向脉管畸形,镜下表现与 ALM 很难鉴别”。

患者于 2017 年 3 月 20 日入住我院介入科行动脉造影及栓塞治疗。为求进一步切除肿物,患者于 4 月 25 日转入我科。入院检查:全身一般情况好,颈前气管造瘘状态,双侧颈部下颌缘至颈根部弥漫性隆起,右侧甲状腺平面最明显,双侧颈部未及明显静脉血管怒张,口咽及下咽后壁明显隆起(图 2a)。4 月 27 日于全身麻醉下行颈部肿物切除术。术中沿颈部第二皮纹作横行切口至双侧胸锁乳突肌外缘,逐层分离皮肤、皮下组织,沿颈阔肌深面向上分离皮瓣至舌骨平面,向下分离皮瓣至锁骨上水平;沿右侧胸锁乳突肌前缘分离该肌暴露颈鞘,探查肿物质地中等偏硬,色灰白,考虑与术前硬化剂注射及介入治疗有关。肿物位于颈鞘内侧、甲状腺外侧及后方、椎前筋膜浅层;肿物包裹食管外侧及后方,与右侧甲状腺外侧及部分食管浆膜层粘连(为肿物活检及注射硬化剂部位),尚可分离。其余部分肿物包膜完整,与颈鞘、椎前筋膜、喉-气管以及咽部无明显粘连。术中自右侧颈部于椎前筋膜表面,喉-气管以及咽-食管深面沿肿物包膜向对侧逐渐游离肿物,下达右侧上纵隔,上至鼻咽平面,对侧至左侧颈鞘内侧。术中切除部分与肿物粘连的食管浆膜层,注意保护喉返神经、咽后壁以及食管黏膜的完整性。手术顺利,肿物完整切除(图 3),术创放置负压引流管一根,逐层关闭术腔,术中出血约 50 ml。巨体检查:颈部肿块,大小 11 cm×

* 基金项目:上海交通大学医学院附属第九人民医院基础研究助推计划资助(No.:JYZZ005)

¹上海交通大学医学院附属第九人民医院耳鼻咽喉头颈外科上海市耳鼻疾病转化医学重点实验室上海交通大学医学院耳科学研究所(上海,200011)

通信作者:王振涛,E-mail: wangzhentaoo@hotmail.com

8 cm×3 cm,表面灰白色,凹凸不平,切面呈多结节,灰白色,质硬;镜下诊断:良性软组织肿瘤,结合免疫组织化学符合 ALM;免疫组织化学:Desmin(+);SMA(+);CD31(-);CD34(+);Ki67(+,1%);Vimentin(+);D-240(-);p53(-)。

患者于术后第3天拔除颈部负压引流管,术后1周拆线,术后2周顺利拔除气管套管。术后1年复查,电子喉镜提示咽后壁无明显隆起(图2b);颈部MRI无复发(图4)。

2 讨论

ALM病因尚不明确,约89%发生于四肢末端,尤其是踝及腕部的真皮深层及皮下^[1]。头颈部ALM仅有少量个案报道^[2-5]。本例ALM患者曾多次就诊于多家大型三甲医院,从初次就诊到本科手术间隔半年多,术前已有呼吸困难症状,虽经介入科硬化剂注射治疗,手术时病灶最大径仍达11 cm,值得注意。

病理上ALM为良性病变,根据构成可分为实体型、海绵型以及静脉型^[3]。有些ALM也可发生钙化性改变,钙化的原因可能与病程较长、反复创伤等有关^[6]。常规苏木精-伊红染色一般即可诊断,免疫组织化学有助于进一步明确,检测指标包括calponin、Desmin、SMA、CD31、CD34、HMB-45、S100、Ki67等^[3]。需要与ALM鉴别的疾病主要有:①血管平滑肌脂肪瘤,因含脂肪细胞,故HMB-45呈阳性表达;②血管瘤,其血管间的基质内不含有平滑肌束;③肌周细胞瘤,其薄壁血管周围有卵圆形或梭形的肌周细胞增生,SMA呈阳性表达,Desmin阴性或局灶阳性;④纤维血管瘤,由丰富的

薄壁血管及基质构成,基质中有圆形、星形或纺锤形的成纤维细胞;⑤平滑肌肉瘤,肿瘤细胞出现核异形和分裂相;⑥神经源性肿瘤,S100呈阳性表达^[3,7-8]。

CT上ALM常表现为境界清晰的软组织肿块影,与血管瘤相似^[3]。MRI上ALM常表现为T2WI为非均质的高信号、边缘环形低信号,增强后明显强化^[8]。虽然影像学检查无特征性表现,但术前CT及MRI检查有助于明确病变部位、大小、范围以及毗邻关系,从而指导选择合适的手术方案^[3]。

手术是根治ALM的有效手段,一般可沿包膜外完整切除肿块,切除后复发率低,预后良好^[8-9]。若肿瘤较大且影像学检查提示血管丰富,宜采取联合血管介入的综合手术治疗手段,切除前先行栓塞治疗,以控制手术的难度和风险。本例患者术中仅出血约50 ml,考虑与ALM经术前硬化剂注射及介入治疗后发生纤维化有关。术中我们发现肿物除活检处有粘连外,其余部位肿物与周围组织较易分离,说明术前硬化剂注射和介入治疗并不增加术中分离难度,但活组织检查不应列为常规检查手段。

参考文献

- [1] WOO K S, KIM S H, KIM H S, et al. Clinical experience with treatment of angioleiomyoma [J]. Arch Plast Surg, 2014,41:374-378.
- [2] LIU Y, LI B, LI L, et al. Angioleiomyomas in the head and neck: A retrospective clinical and immunohistochemical analysis[J]. Oncol Lett, 2014,8:241-247.

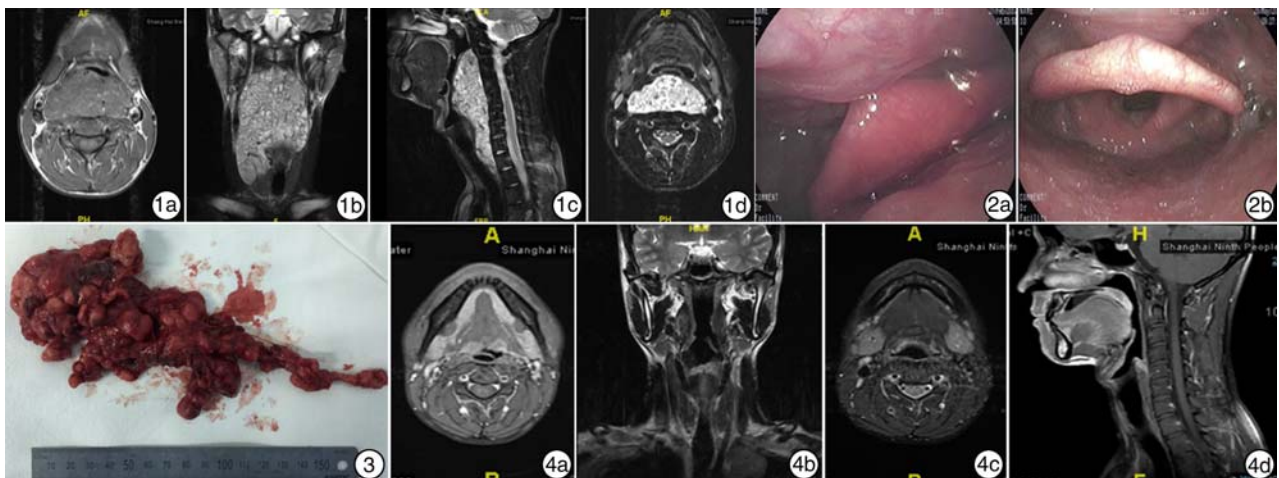


图1 术前颈部MRI 1a:T1WI横断面;1b:T2WI冠状面;1c:T2WI矢状面;1d:T2WI横断面。右颈深下、中、双侧咽后间隙(甲状腺水平至鼻咽部)可见团块状异常信号影,形态欠规则,边界清,范围约69 mm×34 mm×130 mm,T1WI呈等信号,T2WI及其压脂像呈高信号,信号不均匀,内混杂点状低信号影;咽腔受压变窄;邻近骨髓信号未见明显异常,颅底结构未见异常;右颈部、双侧咽后静脉畸形可能;图2 电子喉镜检查 2a:术前咽后壁明显隆起;2b:术后1年咽后壁无明显隆起;图3 切除标本 颈部肿块,大小11 cm×8 cm×3 cm,表面凹凸不平;图4 术后1年颈部MRI 4a:T1WI横断面增强;4b:T2WI冠状面;4c:T2WI横断面;4d:T2WI矢状面。颈部软组织未见明显肿块或异常信号影,增强后未见明显异常强化灶,右咽后壁软组织形态较对侧稍饱满,颈部未见明显肿大淋巴结。

- [3] MATIAKIS A, KARAKOSTAS P, PAVLOU A M, et al. Angioleiomyoma of the oral cavity: a case report and brief review of the literature[J]. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg, 2018,44:136-139.
- [4] 张鑫,张书玲,肖士卿. 鼻前庭血管平滑肌瘤 1 例[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2010,24(10):476-476.
- [5] 冯俊,唐嗣泉,赵冰琳,等. 喉血管平滑肌瘤 1 例[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2007,21(10):472-472.
- [6] SAKAI E, ASAI E, YAMAMOTO T. Acral calcified angioleiomyoma[J]. Eur J Dermatol,2010,20:121-122.
- [7] DUBINA M, GOLDENBERG G. Viral-associated nonmelanoma skin cancers: a review[J]. Am J Dermatopathol, 2009,31:561-573.
- [8] 朱国臣,肖大江,张永胜,等. 头颈部血管平滑肌瘤[J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科,2016,23(7):377-380.
- [9] RANJAN S, SINGH K T. Gingival angioleiomyoma-infrequent lesion of oral cavity at a rare site[J]. J Oral Maxillofac Pathol,2014,18:107-110.

(收稿日期:2018-07-12)

外耳道基底鳞状细胞癌 1 例

刘定¹ 冯雨² 谢冰斌¹ 张少容¹

[关键词] 耳肿瘤;鳞状细胞癌;外耳道

doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2019.03.024

[中图分类号] R739.61 [文献标志码] D

Basal squamous cell carcinoma of external auditory meatus: a case report

Summary The patient developed repeated itching and scabbing at the mouth of the left external auditory canal 5 years ago. In the last two years, the tumor is enlarged. After admission, the left external auditory canal can be seen as a reddish mass, brittle and easy to bleed. CT of temporal bone showed that the soft tissue shadow of left external auricle and external auditory canal was thickened. Postoperative pathological findings: (left external auditory canal) basal cell squamous cell carcinoma. According to the history, physical examination and laboratory examination, the diagnosis is considered as basal squamous cell carcinoma of the external auditory meatus.

Key words ear neoplasms; squamous cell carcinoma; external acoustic meatus

1 病例报告

患者,男,70岁,因发现左外耳道肿物5年余于2018年4月19日入院。患者于5年前出现左外耳道口反复瘙痒结痂,自行挖耳后结痂反复出现,初起无明显疼痛,偶有脓血,未予以重视。近2年来肿物增大,且挖耳后疼痛明显,伴渗液及流血,遂就诊我院。入院后耳科查体:左侧外耳道口可见淡红色肿物,质脆,伴触痛,易出血,外耳道狭小,鼓膜窥视不清。硬性耳内镜检查(图1)示:左外耳道口见淡红色新生物。颞骨CT(图2)示:左侧外耳廓及外耳道软组织影增厚,建议进一步检查。术前外耳道活检示:炎性肉芽组织。于4月24日行左侧外耳道肿物切除术,术中见外耳道口大块肉芽样病变填塞外耳道,予以完整切除。术后病理(图3)示:(左外耳道)基底鳞状细胞癌。术后建议患者再次手术扩大切缘,遂行颞骨部分切除术及外耳道封闭术,现患者一般情况可,定期门诊复查。

2 讨论

基底鳞状细胞癌是一种罕见的具有基底细胞癌和鳞状细胞癌特征的侵袭性上皮癌^[1],好发于50~70岁老年男性^[2],主要位于头颈部。据报道,基底鳞状细胞癌的发病率为1.2%~2.7%,手术切除的复发率为12%~51%,莫氏显微手术的复发率为4%,转移的发生率至少为5%^[1]。发生周围神经浸润率为7.9%^[3],淋巴结转移率为7.7%^[4]。也有研究报告认为,基底鳞状细胞癌是基底细胞癌的一个变种,有明确的包含基底细胞癌和鳞状细胞癌的区域,它们之间有一个过渡区,表明其中一个肿瘤分化为另一个肿瘤^[5]。因此往往需临床病理将基底鳞状细胞癌与其他形式的基底细胞癌区分开来^[1]。

基底鳞状细胞癌的治疗主要以手术切除为主,手术切缘根据疑似肿瘤诊断进行。疑似鳞状细胞癌且直径小于2cm的切缘为4~6mm,不包括位于头皮、耳、眼睑、鼻或嘴唇等区域的肿瘤,对高风险区域手术切缘应超过6mm^[6]。低风险区域疑似浅表和结节性基底细胞癌,切缘为3~4mm,浸润性基底细胞癌为4~5mm^[7]。

¹南昌大学第二附属医院耳鼻咽喉头颈外科(南昌,330006)²南昌大学第二附属医院病理科

通信作者:张少容,E-mail:zhangsr@tom.com