

具有典型特征的 EPC, 实现了骨髓 EPC 的定向诱导分化, 且操作简便, 具有较好的可重复性, 同时以骨髓作为细胞来源又可实现自体移植, 为细胞移植及 EPC 的进一步研究打下了基础。

#### 参考文献

- 1 Asahara T, Murohara T, Sullivan A, et al. Isolation of putative progenitor endothelial cells for angiogenesis. *Science*, 1997, 275:964–967
- 2 Hristov M, Erl W, Weber PC. Endothelial progenitor cells: mobilization, differentiation, and homing. *Arterioscler Thromb Vasc Biol*, 2003, 23(7):1185–1189
- 3 Peichev M, Naiyer AJ, Pereira D, et al. Expression of VEGFR-2 and AC133 by circulating human CD34+ cells identifies a population of functional endothelial precursors. *Blood*, 2000, 95:952–958
- 4 Fadini GP, Sartore S, Albiero M, et al. Number and function of endothelial progenitor cells as a marker of severity for diabetic vasculopathy.

*Arterioscler Thromb Vasc Biol*, 2006, 26:2140–2146

- 5 Hristov M, Erl W, Weber PC. Endothelial progenitor cells: mobilization, differentiation and homing. *Arterioscler Thromb Vasc Biol*, 2003, 23: 1185–1189
- 6 Tamarat R, Silvestre JS, Le Ricousse – Roussanne S, et al. Impairment in ischemia – induced neovascularization in diabetes: bone marrow mononuclear cell dysfunction and therapeutic potential of placenta growth factor treatment. *Am J Pathol*, 2004, 164(2):457–466
- 7 Thum T, Fraccarollo D, Schultheiss M, et al. Endothelial nitric oxide synthase uncoupling impairs endothelial progenitor cell mobilization and function in diabetes. *Diabetes*, 2007, 56(3):666–674
- 8 Gallagher KA, Liu ZJ, Xiao M, et al. Diabetic impairments in NO mediated endothelial progenitor cell mobilization and homing are reversed by hyperoxia and SDF-1 alpha. *J Clin Invest*, 2007, 117:1249–1259

(收稿:2009-12-18)

## 成人腹腔淋巴管瘤 101 例综合分析

张梦然 吴小丽 吴建胜 金 尹 黄智铭 陈民新

**摘要 目的** 探讨成人腹腔淋巴管瘤的病因、临床表现、影像学特点及诊治方法。**方法** 综合分析 101 例成人腹腔淋巴管瘤患者的临床资料, 其中我院 11 例, 国内文献报道 90 例。**结果** 男性:女性为 1.2:1, 年龄 18~77 岁, 平均 54 岁。临床表现为腹部包块 54 例(占 53.3%), 以腹胀不适或乏力等非特异性症状 38 例(占 37.4%), 4 例表现为急腹症(占 4%)。术前所有病例均行腹部 CT 平扫检查, 部分病例行腹部 B 超及 CT 增强及 MRI 检查, 2 例行肠镜检查, 1 例行保留灌肠的 CT 平扫。术前所有病例均未能确诊, 93 例临床诊断正确, 误诊 8 例, 误诊率为 7.9%。除 1 例行穿刺活检外, 其余 100 例均手术治疗。术后除 1 例合并恶性肿瘤患者预后不良外, 其余均无复发, 疗效满意。**结论** 腹腔淋巴管瘤是临床少见的良性肿瘤。术前诊断困难, 需借助 B 超、CT 及 MRI 等影像学技术综合进行诊断。手术治疗为首选的治疗方法, 术后多无复发, 预后良好。

**关键词** 腹腔淋巴管瘤 CT MRI

**Comprehensive Analysis of 101 Cases with Abdominal Lymphangioma in Adults.** Zhang Mengran, Wu Xiaoli, Wu Jiansheng, Jin Yin, Huang Zhiming, Chen Minxin. *Gastroenterology, First Affiliated Hospital of Wenzhou Medical College, Zhejiang 325000, China*

**Abstract Objective** To explore the etiology, clinical characteristics, imaging features, diagnosis and treatment of abdominal lymphangioma in adults. **Methods** Clinical data of 101 cases with abdominal lymphangioma in adults including 11 cases in our hospital and 90 cases reported in Chinese literature within five years were analyzed. **Results** The male to female ratio was approximately 1.2:1. The mean age at diagnosis was 54 years old. The signs of abdominal lymphangioma included abdominal mass in 54 cases(53.3%), abdominal discomfort or fatigue and other non-specific symptoms in 38 cases(37.4%), and acute abdomen(4%) in 4 cases. All patients received abdominal CT scan examination. Of the 101 cases, abdominal B – ultrasound, CT enhancement and MRI examination were performed in some cases, routine colonoscopy test in two cases, routine CT scan of the retention enema in one case. The preoperative diagnose of abdominal lymphangioma were difficult, but the clinical diagnosis was correct in 93 cases, misdiagnosis in 8 cases, and the misdiagnosis rate was 7.9%. In addition to the routine biopsy, 100 cases received operations. The rest cases had no recurrence after operation and the effect of treatments were satisfactory, except for 1 case merging with malignant tumor. **Conclusion** Abdominal lymphangioma is an rare benign tumor. Preoperative diagnosis is difficult, so it needs to rely on B – ultrasound, CT and MRI imaging technology for a comprehensive diagnosis. Surgery is the preferred treatment. Furthermore, most of the patients after operation have little chance to recurrence and the

effect of treatment is good.

**Key words** Abdominal; Lymphangioma; CT; MRI

淋巴管瘤(lymphangioma)是淋巴源性良性病变。成人淋巴管瘤可发生在任何包含有淋巴组织的部位,但腹腔淋巴管瘤非常少见。本病于 1828 年首次被描述。1989 年 Kennedy 等<sup>[1]</sup>在 Wegner 的基础上建议将其分为 4 类:海绵状淋巴管瘤,囊性淋巴管瘤(又称囊性水囊瘤),弥漫性多发性淋巴管瘤或淋巴管瘤病和表皮皮肤淋巴管瘤(包括单纯性淋巴管瘤、曲张性淋巴管瘤)。国内成人腹腔淋巴管瘤有个例报道,但缺乏综合临床资料分析。检索中国生物医学文献数据库,近 5 年成人腹腔淋巴管瘤共有 37 篇文献报道,排除同单位重复病例,选取其中有详细资料的 21 篇 90 例,结合我院 1999 年 1 月~2009 年 10 月经手术治疗、病理确诊的病例 11 例,共计 101 例。现对其临床资料进行综合分析,以探讨腹腔淋巴管瘤的病因,临床表现,影像学特点,诊断和治疗。

### 资料与方法

1. 一般资料:101 例患者中,男性 55 例,女性 46 例,男性:女性为 1.2:1。患者年龄 18~77 岁,平均年龄 54 岁。其中肠系膜淋巴瘤 32 例(31.7%),小肠淋巴管瘤 24 例(23.8%),结、直肠淋巴管瘤 8 例(7.9%),后腹膜淋巴瘤 23 例(22.8%)。其中胰腺淋巴管瘤 4 例,脾脏淋巴瘤 11 例(10.9%),肝脏淋巴瘤 1 例(1.0%),肾脏淋巴瘤 1 例(1.0%),腹腔广泛分布的淋巴瘤 1 例(1.0%)。

2. 临床表现:本组所有病例中,患者自觉发现腹部包块 35 例(其中伴疼痛 18 例)占 34.7%,体检发现腹部包块 19 例占 18.6%,腹部饱胀不适 19 例占 18.6%,反复间断性腹痛 14 例占 13.6%,急性腹痛 7 例占 6.8%,便血 4 例占 4.2%,腹部手术前常规检查发现 2 例占 1.7%,黄疸 1 例占 1%。其中 12 例伴不全性肠梗阻占 11.9%,4 例以持续性或转移性右下腹疼痛急诊入院占 4.0%,2 例表现为盆腔占位,1 例并发肠套叠,1 例合并胸壁恶性肿瘤。

3. 影像学检查方法与特点:101 例病例均行腹部 CT 平扫检查,部分病例如腹部 B 超、CT 增强及 MRI 检查,2 例行肠镜检查,1 例行保留灌肠的 CT 平扫。

本组 32 例肠系膜淋巴管瘤 CT 表现为:腹部囊肿形状多规则,成圆形、椭圆形或分叶状,直径 5~24cm 不等,囊壁菲薄光滑,无壁结节,囊内密度均匀水样。其中单房囊肿 3 例(占肠系膜淋巴管瘤的 9.4%),多房囊肿 29 例(占肠系膜淋巴管瘤的 90.6%),多房内均有分隔。部分病例如行 CT 增强扫描,其中 20 例囊肿及囊壁未见强化,但囊内分隔均有明显强化,8 例有局部强化区。13 例行腹部 B 超检查显示:腹部单发、单房或多房性囊肿。小肠淋巴管瘤及结、直肠淋巴管瘤一般多发生于黏膜或黏膜下层,浆膜下相对较少见<sup>[2]</sup>。本组仅 5 例

发生于肠管浆膜下。部分病例行腹部 B 超检查,提示:肠腔内单房或多房囊性肿块。2 例行肠镜检查,见肠壁黏膜面或黏膜下隆起性肿物,环肠腔生长,突入肠腔,质地偏软。19 例腹膜后淋巴管瘤患者均行 B 超检查,表现为:界限清楚的无回声液性肿块。囊壁光滑,部分可见分隔。除 2 例在无回声液性暗区内有点状强回声外,其余为均匀一致的无回声液性暗区。其中单房 5 例,多房 14 例。CT 平扫见肿块多位于胰尾部后下方,形态多规则,沿腹膜后间隙生长,界限大多清晰。其中 2 例囊壁周围可见点状钙化,1 例囊壁薄厚不均。所有病例均为囊性淋巴管瘤。

胰腺淋巴管瘤可压迫临近组织如胃后壁或脾门等。本组 4 例胰腺淋巴管瘤腹部 B 超提示:腹部囊性肿块,肿块与胰腺组织交界不清,结构模糊。CT 提示右中上腹部囊性或囊实质性占位,囊壁菲薄、光滑,肿块呈多囊状低密度影,CT 值 8~17Hu,囊内密度均匀,可见分隔。增强后可见囊壁及囊内分隔强化,动静脉期无明显变化,囊内无强化。影像学检查不易与胰腺囊腺瘤或胰腺假性囊肿相区分。脾脏淋巴管瘤 11 例,腹部 B 超检查均发现脾脏占位,多为囊性或囊实质性肿块。CT 表现为:脾脏增大,脾内可见类圆形或小片状单发或多发低密度影,轮廓呈分叶改变,边缘模糊,与周边组织边界欠清,病灶在脾内多弥漫分布,整个脾呈蜂窝样改变。病灶一般为多发、多房分叶状囊性,囊内可见粗细不均匀的间隔,囊内 CT 值 6~22Hu。增强后囊壁均有轻度强化,间隔门静脉期轻度强化 3 例,中度强化 4 例,延迟期轻度强化 4 例。11 例中脾脏大小、外形均正常 6 例,大小正常、轮廓局部突出 3 例,2 例脾脏明显增大、脾下极超过肝下缘 2cm。其中多发多房 5 例(占本组脾淋巴管瘤病例的 45.5%),多发单房和单发单房各 3 例。病理证实为海绵状淋巴管瘤 3 例,余为囊性淋巴管瘤。本组 1 例肾脏淋巴管瘤 CT 可见双侧肾脏体积增大,肾外侧包膜下可见囊性占位病变。囊肿边缘少量分隔。囊壁薄 1~2mm,肾实质明显受压、变形内移。

101 例腹腔淋巴管瘤术前临床诊断多为腹部肿物或腹腔囊性占位病变。其中误诊为急性阑尾炎 4 例、卵巢囊性肿瘤 2 例、胰腺恶性肿瘤 1 例、淋巴瘤 1 例,误诊率为 7.9%。本组病例术前均未能确诊为淋巴管瘤。

### 结 果

除 1 例肾淋巴管瘤行肾穿刺活检外,其余病例均行手术治疗,予单纯肿块切除或伴有部分或全部周围组织切除,同时做病理检查予以确诊。除 1 例合并恶性肿瘤者预后不良外,其余患者术后随访均无复发,疗效满意。由于腹腔淋巴管瘤产生原因及部位不同,其肿瘤组织大体标本肉眼所见亦差别较大。据本组病例分析及以往文献报道肿瘤多囊性或囊实性多见,

肿瘤大小不等,形状多规则,以多囊常见,囊壁薄半透明,内含囊液。囊液性质不同,密度也不同。小肠系膜淋巴管瘤囊液多为乳糜性,大肠系膜淋巴管瘤多为浆性,合并感染或出血时可为脓性或血性<sup>[3,4]</sup>。手术切除肿瘤组织,其病理上主要表现为淋巴管的扩张、淋巴组织增生和淋巴管组织结构紊乱,可向周围组织浸润生长,但淋巴管瘤极少发生癌变。淋巴管壁内衬一层扁平上皮,壁可含有淋巴样组织、小的淋巴间隙、平滑肌组织和泡沫细胞。

## 讨 论

淋巴管瘤是一种较罕见的良性病变,来源于中胚层。据统计90%发生在2岁以下儿童,多见于颈部与腋部。发生于成人的淋巴管瘤极少数发生于腹腔(<1%)。Kurtz等综合报道了162例腹腔淋巴管瘤,其中肠系膜淋巴管瘤139例,腹膜后淋巴管瘤23例,其60%发生在小肠系膜,24.0%在大肠系膜,14.5%位于腹膜后<sup>[5]</sup>。内脏相当罕见,以脾脏相对较多。其病因至今仍未取得一致性意见。根据淋巴管系统的发展过程来看,有学者认为由于淋巴管系统胚胎组织缺陷,淋巴管发育不全,错构,淋巴液不能正常引流,导致淋巴管增扩大所致<sup>[6]</sup>。Rieker等学者通过临床病例观察认为其病因与继发性感染有关,推断外伤、手术、放疗等损伤可引起淋巴管损伤造成淋巴引流受阻<sup>[7]</sup>。成人腹腔淋巴管瘤以囊性多见,通常起病隐匿,临床表现多为无痛性巨大占位性病变,受累部位压迫症状,症状多无特异性,少数也可表现为急腹症。本组101例病例中多数以腹部包块为主要表现(占53.3%),部分以反复腹痛、腹胀不适或乏力等非特异性症状就诊(占37.4%),少数表现为急性腹痛急诊入院(占4%)。

本组病例典型的B超声像表现为单房或多房无回声的囊性肿块,呈类圆形或不规则形,边界清楚,多伴有内部分隔,少数可见因出血、感染、机化所致的囊壁钙化。其CT表现多为:病灶呈单房或多房,以多房常见。囊肿多为均匀一致的水样密度,低密度为主,平扫CT值4~42Hu不等,边界清楚,囊壁菲薄,可见因囊内感染或出血所致的液平面或钙化。CT增强扫描中央囊性区一般无强化,囊壁及分隔部分强化,程度不等。延迟扫描后病灶主体仍缺乏强化,反映了淋巴管瘤缺少血管结构的组织学特点。B超和

CT应作为首选检查方法。MRI具有定性作用,对囊内出血的病灶进行鉴别优于CT,尤其可以显示囊肿的来源<sup>[8]</sup>。本组病例术前临床诊断多为腹部肿物或腹腔囊性占位病变。其中误诊为急性阑尾炎4例、卵巢囊性肿瘤2例、胰腺恶性肿瘤1例、淋巴瘤1例,误诊率为7.9%。腹腔淋巴管瘤因其在成人发病率低,且腹部囊性病变较多,其临床症状又缺乏特异性,故术前确诊困难。需借助B超、CT等辅助检查明确肿块部位、大小、是否囊性、囊壁和囊液特点及肿块与邻近组织的结构关系,综合分析进行诊断。若影像学上发现病灶巨大,超声见囊性或蜂窝状液性暗区或粗大管状结构,CT表现为单房或多房(以多房更常见)囊肿,但临床症状轻微时均应考虑本病可能。淋巴管瘤最终确诊仍有赖于病理组织学检查。

淋巴管瘤为良性肿瘤,尽管其临床表现不一,但至今仍以手术为首选的治疗方法。本组病例除1例肾脏淋巴管瘤行肾穿刺活检外,其余均行单纯肿块切除或伴有部分或全部周围组织切除手术治疗。值得注意的是腹腔淋巴管瘤手术应力求肿瘤完整切除,以避免由于切除不完整而导致的术后复发。本组除1例合并恶性肿瘤患者预后不良外,其余患者术后随访均无复发,疗效满意。随着现代影像等辅助检查技术的进步,临床医生的认识不断提高,腹腔淋巴管瘤是可以及时诊断的,其误诊率及不良后果将不断减少。

## 参 考 文 献

- Kennedy TL. Cystic hygroma – lymphangioma: a rare and still unclear entity[J]. Laryngoscope, 1989, 99(10): 1–10
- 李超英,任智,等. 小肠淋巴管瘤四例. 中华普通外科杂志, 2007, 22(4): 299
- 卢延,夏文龙,林应铭,等. 肠系膜淋巴管瘤(附14例报告). 临床放射医学杂志, 1988, 7: 265
- Takiff H, Calabria R, Yin L, et al. Mesenteric cysts and intra-abdominal cystic lymphangiomas. Arch Sng, 1985, 120: 1266–1269
- Kurtz RJ, Heimann TM, Holt J, et al. Mesenteric and retroperitoneal cysts. Ann Surg, 1986, 203: 109–112
- Colovic RB, Crubor NM, Micev MT, Atkinson HD, Rankovic VI, Jagodic MM. Cystic lymphangioma of the pancreas. World J Gastroenterol, 2008, 14: 6873–6875
- Rieker RJ, Quentmeier A, Weiss G, et al. Cystic lymphangioma of the small-bowel mesentery[J]. Pathol Oncol Res, 2000, 6(2): 146–148
- 程相超,吴韬,等. 巨大肠系膜囊性淋巴管瘤1例报告. 新医学, 2008, 39(7): 466–467

(收稿:2009-12-17)