

恶性潜能未定的平滑肌肿瘤1例并文献复习

宋志双, 李美燕, 张淑慧, 王福玲*

青岛大学附属医院, 山东 青岛

Email: *songzs1995@163.com

收稿日期: 2021年8月17日; 录用日期: 2021年9月9日; 发布日期: 2021年9月22日

摘要

绝大多数子宫平滑肌瘤可根据病理学特征明确良、恶性, 但其组织病理学形态及生物学行为表现多样, 少数平滑肌肿瘤分类不明确, 不能明确诊断为平滑肌肉瘤, 但也不完全符合平滑肌瘤或其亚型诊断标准, 可能具有恶性生物学行为的平滑肌肿瘤归于恶性潜能未定的平滑肌肿瘤(smooth muscle tumor of uncertain malignant potential, STUMP), 目前关于STUMP的诊断、分类及治疗尚无共识, 且缺乏大样本研究数据, 常以个案报道分析其特征。本文回顾性分析1例STUMP患者的临床病理特征, 结合相关文献探讨STUMP的临床表现、诊断、治疗及预后特征。

关键词

恶性潜能未定的平滑肌肿瘤, 临床表现, 病理特征, 治疗

One Case of Smooth Muscle Tumor with Undetermined Malignant Potential and Literature Review

Zhishuang Song, Meiyang Li, Shuhui Zhang, Fuling Wang*

Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

Email: *songzs1995@163.com

Received: Aug. 17th, 2021; accepted: Sep. 9th, 2021; published: Sep. 22nd, 2021

Abstract

The vast majority of uterine leiomyoma can be defined as benign or malignant according to pa-

*通讯作者。

thological characteristics, but its histomorphological morphology and biological behavior are diverse. A few smooth muscle tumors are not clearly classified and cannot be clearly diagnosed as leiomyosarcoma, but they do not fully meet the diagnostic criteria for leiomyoma or its subtypes. Smooth muscle tumor of uncertain malignant potential (STUMP) may be classified as smooth muscle tumor of uncertain malignant potential. Currently, there is no consensus on the diagnosis, classification and treatment of the STUMP. In addition, due to the lack of large sample data, the characteristics are often analyzed by case reports. This paper retrospectively analyzed the clinicopathological characteristics of one case of stump-infected patient, and combined with relevant literature to discuss the clinical manifestations, diagnosis, treatment and prognosis of the stump-infected patient.

Keywords

STUMP, Clinical Manifestations, Pathological Features, Treatment

Copyright © 2021 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 病例简介

患者, 56岁, 女性, 因“发现子宫肌瘤15年, 生长较快3年, 阴道流血伴腹胀1月。”于2021年05月17日入院。患者15年前查体B超提示子宫肌瘤大小约4cm, 1月前出现阴道少量不规则流血, 伴腹胀, 餐后腹胀明显加重。查体腹部膨隆似足月妊娠大小, 扪及巨大盆腹腔包块, 上缘达剑突, 两侧达侧腹部。妇科查体子宫扪及不清, 盆腹腔巨大实性包块, 大小如足月妊娠, 质硬, 无压痛, 有一定活动度。超声(如图1)提示宫底后壁见 $19.6 \times 21.9 \times 14.3$ cm低回声团块, 边界尚清, 内以囊性为主, 囊性范围约 $16.2 \times 18.1 \times 12.4$ cm, 考虑子宫肌瘤(囊性病变更可能)。盆腔CT提示腹盆腔内见巨大囊实性肿物, 与子宫相连, 最大截面约 210.7×160.6 mm。子宫实质内见多发结节状稍低密度影, 大者长径约40 mm。盆腔增强CT(如图2)提示腹盆腔内见巨大囊实性肿物, 与子宫相连, 最大截面约 210.7×160.6 mm, 增强扫描囊壁均匀轻度强化。子宫实质内见多发结节状稍低密度影, 大者长径约40 mm, 均匀轻度强化。左侧附件区见类圆形低密度影, 边界较清, 长径约37.5 mm, 未见明显强化; 腹盆腔内巨大囊实性肿物, 子宫肌瘤(囊性变)可能性大。CA125: 62.7 u/ml, 神经元特异性烯醇化酶(NSE): 59.8 u/ml, 血红蛋白110 g/L, 患者既往高血压病史。入院诊断: 1) 盆腹腔巨大肿物性质: 子宫肌瘤? 2) 轻度贫血 3) 高血压3级(高危)。入院后行剖腹探查术, 因盆腹腔包块巨大, 考虑血管丰富, 不能排除胃肠道来源肿瘤、恶性肿瘤等可能, 术中有大出血, 失血性休克可能, 术前备足红细胞, 术中取子宫时台上助手按压腹部, 避免腹压降低过快出现回心血量骤增, 导致心衰、心脏骤停、猝死等风险, 术前与麻醉科医生充分沟通, 密切监护生命体征, 做好抢救工作。术中见子宫如足月妊娠大小, 根据探查结果及病人要求行筋膜外子宫全切术+双侧附件切除术。钳夹提起子宫内见巧克力样液体喷出, 吸出囊内液500 ml。术中冰冻病理提示子宫腺肌病伴广泛出血囊性变, 局灶梭形细胞丰富; 子宫平滑肌瘤, 富于细胞。术后病理提示1) 子宫腺肌病伴广泛出血囊性变, 囊性变周围区域梭形细胞丰富, 核分裂像可见, 部分区域伴坏死, 结合免疫组化结果, 意见为恶性潜能未定的平滑肌肿瘤。2) 子宫多发性平滑肌瘤。免疫组化结果: 3#: SMA(+), FH(+), Ki-67(+, 1%), Desmin(+), CD10(-); 9#: ER(+++, 90%), PR(+++, 70%), CD10(-), SMA(+), Desmin(部分+), Ki-67(+, 热点区10%)。



Figure 1. Gynecological ultrasound
图 1. 妇科超声



Figure 2. Enhanced pelvic CT
图 2. 盆腔增强 CT

2. 讨论

子宫平滑肌瘤是女性生殖系统最常见的肿瘤，绝大多数可根据病理学特征明确良、恶性，但其组织病理学形态及生物学行为表现多样，少数平滑肌肿瘤分类不明确。1973年，Kempson首次提出STUMP这一概念[1]。恶性潜能未定的平滑肌肿瘤(smooth muscle tumor of uncertain malignant potential, STUMP)是临床上一类少见的平滑肌瘤，既不符合平滑肌肉瘤的病理特征，又不完全符合平滑肌瘤或其类型诊断标准，存在一定的恶性生物学行为[2]，有发展为肉瘤的可能。目前STUMP的诊断、分类及治疗尚无共识，缺乏特异性临床表现及辅助检查方法，主要依赖术后组织病理学确认，其诊断和治疗对临床及病理医师的要求较高。本文回顾性分析1例STUMP患者的临床病理特征，结合相关文献探讨STUMP的临床表现、诊断、治疗及预后特征。

2.1. 临床表现及病理特征

STUMP发病率较低，主要临床表现为异常子宫出血、盆腔包块、盆腔压迫症状、继发性贫血等[3]，部分患者无明显临床表现，仅在查体时发现，大多数缺乏典型的临床表现，与典型的子宫平滑肌瘤类似。陈圆等[4]报道的23例STUMP中有16例行血清肿瘤标记物检测，仅2例患者CA125轻度升高，本文病例CA125及NSE轻度升高，考虑肿瘤标记物在STUMP的辅助诊断方面特异度及灵敏度均较低。丁琳茹等[5]报道的1例STUMP在超声影像表现为子宫肌层内混合性囊实性回声团，其内可探及不规则网格状

分隔回声, 肿物呈现蜂窝状改变, CDFI 示瘤体内及周边可探及少量血流信号。本文病例 B 超提示宫底巨大低回声团块, 边界尚清, 内以囊性为主, 盆腔增强 CT 提示腹盆腔内巨大囊实性肿物, 增强扫描囊壁均匀轻度强化。当超声及 CT 提示源于子宫的囊实性肿物时临床医师应考虑有子宫 STUMP 的可能。Ha 等[3]研究报道 STUMP 患者术中冰冻病理仅有 27.27% 提示不能排除 STUMP, 其余均为平滑肌瘤或肉瘤。本文病例术中冰冻病理提示子宫腺肌病囊性变, 子宫平滑肌瘤富于细胞。可以看出, 仅凭术中冰冻确诊 STUMP 难度非常大, 具体分型还要依靠术后病理结合免疫组化结果。STUMP 的确诊主要依靠病理学检查, 但目前尚无统一标准, 主要根据有无肿瘤细胞凝固性坏死、细胞异型性、核分裂象这三方面来综合评估, 还可结合细胞丰富程度和肿瘤边界等指标综合分析。但是某些情况下, 核分裂象的判别非常困难, 另外鉴别肿瘤的坏死类型有时也很困难。有研究表明, 免疫组化可协助诊断难以明确分类的子宫平滑肌肿瘤, 目前 P16 及 Ki67 与子宫平滑肌肿瘤之间的关系受到广泛关注。细胞周期调节蛋白 p16 直接参与细胞周期调控, 负调节细胞增殖及分裂, 可以通过检测 P16 基因的突变与缺失来判断肿瘤的性质及预后情况, P16 强阳性表达提示复发的风险较高, 且预后不良。Ki67 主要用于判断细胞的增殖活性指数, 表达于除 G0 期外的所有细胞周期阶段, 肿瘤分化程度越低, Ki67 增生指数越高, 恶性程度越高, 预后越差。本文病例患者病史较长, 考虑有子宫平滑肌瘤部分发生恶变导致 STUMP 可能。

2.2. 治疗

目前尚无针对 STUMP 的诊治指南, 但目前公认手术是 STUMP 的标准治疗方式。临床医师应结合患者的年龄、生育要求及全身状况来制定个体化治疗方案, 对于无生育要求的患者应行全子宫加/不加双侧附件切除术, 对于绝经患者建议行全子宫+双侧附件切除术。对于有生育要求的年轻女性, 可行子宫肌瘤剔除术, 但应分析患者术后妊娠的可能性及对于 STUMP 潜在恶性程度的接受程度, 进行充分的风险-利益评估, 术后需严密随访。研究认为, 手术方式并非影响 STUMP 复发的独立危险因素, 不同手术方式的 STUMP 患者的无瘤生存率、复发的类型及间隔时间均无明显差异[6]。STUMP 发病率较低, 目前国内外的文献均以病例报道为主, 缺乏大样本研究, 影响其预后及复发的因素尚未明确, 但其具有恶性潜能, 术后应加强临床及影像学的随访。

2.3. 预后

STUMP 一般生长较缓慢, 但仍有发生远期复发的可能, 甚至有发展成平滑肌肉瘤的可能。多数学者主张 STUMP 患者术后应定期规律随访, 行妇科查体、盆腔 CT 或 MRI 检查, 尽早发现漏诊病例, 并监测肿瘤复发以及时治疗, 避免耽误病情。部分学者建议术后应每隔半年随访 1 次, 持续随访 5 年, 5 年后可适当延长复查时间至 1 年, 持续随访至少 10 年。对于复发患者因临床病例较少, 治疗方案目前尚未达成共识, 但大多数研究者认为手术仍是复发患者首选的治疗方式。

参考文献

- [1] 子宫肌瘤的诊治中国专家共识专家组. 子宫肌瘤的诊治中国专家共识[J]. 中华妇产科杂志, 2017, 52(12): 793-800.
- [2] 张金磊, 张颐, 等. 恶性潜能未定的子宫平滑肌瘤临床病理分析[J]. 中华肿瘤防治杂志, 2017(19): 1392-1395.
- [3] Ha, H.I., Choi, M.C., Heo, J.H., Kim, K.A., Jung, S.G., Park, H., Joo, W.D., Song, S.H., Kim, T.H. and Lee, C. (2018) A Clinicopathologic Review and Obstetric Outcome of Uterine Smooth Muscle Tumor of Uncertain Malignant Potential (STUMP) in a Single Institution. *European Journal of Obstetrics and Gynecology*, **228**, 1-5. <https://doi.org/10.1016/j.ejogrb.2018.06.003>
- [4] 陈圆, 王树鹤. 恶性潜能未定子宫平滑肌瘤临床表现及诊治方法分析[J]. 武警医学, 2018, 29(3): 257-259+263.
- [5] 丁琳茹, 张小亮, 李玉先, 董莉. 子宫肌层恶性潜能未定的子宫平滑肌瘤超声表现一例[J]. 中华医学超声杂志(电子版), 2011, 8(8): 1850-1851.

- [6] Zhang, C., Gao, J., Lu, S.S., Zhang, Y.L. and Zhu, H.L. (2021) Uterine Smooth Muscle Tumors of Uncertain Malignant Potential (STUMP): A Retrospective Study in a Single Center. *European Journal of Obstetrics & Gynecology and Reproductive Biology*, **265**, 74-79.