

# 位于气管的血管球瘤一例报告

徐璐<sup>1\*</sup>, 吴鑫<sup>2#</sup>, 栗付周<sup>3</sup>, 张明辉<sup>3</sup>, 陈号<sup>4</sup>, 高月华<sup>5</sup>

<sup>1</sup>山东第一医科大学(山东省医学科学院), 研究生院, 山东 济南

<sup>2</sup>临沂市人民医院, 设备科, 山东 临沂

<sup>3</sup>临沂市人民医院, 放射科, 山东 临沂

<sup>4</sup>济宁市第一人民医院, 放射科, 山东 济宁

<sup>5</sup>潍坊医学院, 医学影像学院, 山东 潍坊

收稿日期: 2023年11月21日; 录用日期: 2023年12月14日; 发布日期: 2023年12月21日

## 摘要

目的: 研究气管血管球瘤的临床表现、病理特点、影像表现及鉴别诊断。方法: 回顾性分析临沂市人民医院一例确诊为气管血管球瘤的患者的临床、病理及影像资料, 结合以往的相关文献, 归纳其影像特点并予以鉴别。结果: 该患者组织病理学检查见小圆细胞呈巢状排列分布于血管周围, 免疫组织学染色示平滑肌肌动蛋白(SMA)阳性, 钙结合蛋白(caldesmon)阳性, 病理诊断为气管血管球瘤。CT主要表现为气管后壁突向腔内的结节, 密度均匀, 增强扫描呈动脉期明显均匀强化, 静脉期持续强化。结论: 气管血管球瘤较为罕见, 主要通过病理学及免疫组化明确诊断。CT上呈明显强化结节, 需要与气管内的肿瘤如类癌、腺样囊性癌、气管内神经鞘瘤及副神经节瘤等进行鉴别。

## 关键词

气管血管球瘤, 影像学, 病理学, 鉴别诊断

# Tracheal Glomus Tumor: A Case Report

Lu Xu<sup>1\*</sup>, Xin Wu<sup>2#</sup>, Fuzhou Li<sup>3</sup>, Minghui Zhang<sup>3</sup>, Hao Chen<sup>4</sup>, Yuehua Gao<sup>5</sup>

<sup>1</sup>Graduate School, Shandong First Medical University (Shandong Academy of Medical Sciences), Jinan Shandong

<sup>2</sup>Equipment Department, Linyi People's Hospital of Shandong Province, Linyi Shandong

<sup>3</sup>Radiology Department, Linyi People's Hospital of Shandong Province, Linyi Shandong

<sup>4</sup>Radiology Department, Jining No. 1 People's Hospital, Jining Shandong

<sup>5</sup>Medical Imaging School, Weifang Medical University, Weifang Shandong

Received: Nov. 21<sup>st</sup>, 2023; accepted: Dec. 14<sup>th</sup>, 2023; published: Dec. 21<sup>st</sup>, 2023

\*第一作者。

#通讯作者。

文章引用: 徐璐, 吴鑫, 栗付周, 张明辉, 陈号, 高月华. 位于气管的血管球瘤一例报告[J]. 临床医学进展, 2023, 13(12): 19403-19407. DOI: 10.12677/acm.2023.13122732

## Abstract

**Objective:** To explore the clinical manifestations, pathological characteristics, imaging manifestations, and differential diagnosis of tracheal glomus tumor. **Method:** The clinical, pathological and imaging data of tracheal glomus tumor diagnosed in the Linyi people's hospital was analyzed retrospectively. Based on previous relevant literatures, the imaging characteristics and differential diagnosis of tracheal glomus tumor were summarized. **Result:** The histopathological examination of the patient showed a nest like arrangement of small round cells distributed around the blood vessels. Immunohistochemical staining showed that the tumor cells were positive for smooth muscle actin (SMA) and calcium binding protein (caldesmon). The pathological diagnosis was tracheal glomus tumor. The main manifestation of CT showed a nodule protruding from the posterior wall of the trachea into the cavity, with uniform density. The enhanced scan shows obvious and uniform enhancement in the arterial phase, while continuous enhancement in the venous phase. **Conclusion:** Tracheal glomus tumors are relatively rare and are mainly diagnosed through pathology and immunohistochemistry. On CT, there is a significantly enhanced nodule that needs to be differentiated from tumors in the trachea, such as carcinoids, adenoid cystic carcinoma, tracheal schwannoma, and paraganglioma.

## Keywords

Tracheal Glomus Tumor, Imaging, Pathology, Differential Diagnosis

Copyright © 2023 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. 引言

血管球瘤(glomus tumor, GT)是一种起源于神经-肌-动脉血管球组织[1]的良性肿瘤,在软组织肿瘤中占比不到2%,好发于真皮及皮下[1],气管是GT的罕见起源部位,至今报道的气管血管球瘤尚不足90例。我们在此报道了一例气管血管球瘤的患者,通过分析其临床表现、病理特点、影像表现及鉴别诊断,加深临床对气管血管球瘤的认识。

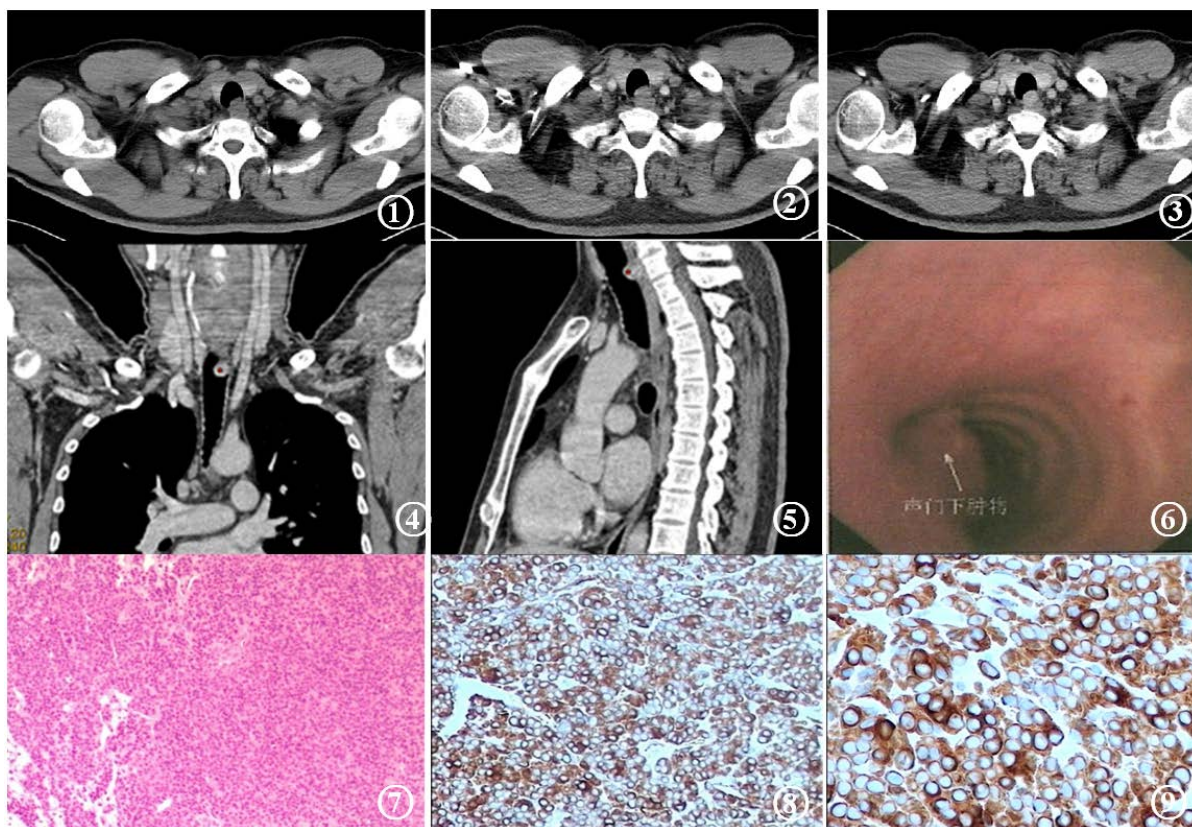
## 2. 病例资料

患者,男性,44岁,因“咳嗽、痰中带血1年”于2017年2月6日在兰山区人民医院行喉镜检查发现气管内肿物,表面新鲜渗血,给予抗炎治疗,症状未见明显好转。遂至临沂市人民医院行进一步检查治疗,临床体格检查未见明显异常,既往无慢性支气管炎病史。

胸部CT平扫示:气管(平颈7水平)腔内后缘见软组织密度结节,截面约 $15 \times 13$  mm,密度均匀,平扫CT值约17HU,边界清楚,向腔内生长,气管管腔狭窄。增强扫描示:动脉期明显均匀强化,CT值约68HU,静脉期持续强化,CT值达106HU。见图1(1)~(5)。

入院后完善相关检查排除禁忌,在静脉麻醉下行电子支气管镜检查示:声门下肿物,基底部较宽,周围血供丰富,气道狭窄约50%。见图1(6)。

活检病理示:肿瘤由单个圆形小细胞组成,呈巢状排列,聚集在血管周围,诊断为(气管肿物)小圆细胞肿瘤。免疫组织化学检查:CK(-),TTF-1(-),P63(-),Syn(-),CgA(-),Ki-67(约1%+),SMA(+),Caldesmon(+),符合血管球瘤。见图1(7)~(9)。



**Figure 1.** (1)~(5) CT plain scan and enhanced scan show a nodule on the posterior wall of the trachea, protruding into the cavity with clear boundaries and uniform enhancement. (6) Bronchoscopy shows a subglottic mass obstructing the airway. (7) HE staining shows that tumor cells are small circular in shape, uniformly sized, and distributed around blood vessels. (8) SMA was diffusely positive (magnification  $10 \times 20$ ). (9) SMA was densely positive (magnification  $10 \times 40$ )

**图 1.** (1)~(5) CT 平扫+增强示气管后壁结节, 向腔内突出, 边界清楚, 增强扫描呈明显均匀强化; (6) 支气管镜示声门下肿物, 阻塞气道; (7) HE 染色肿瘤细胞呈小圆形, 大小一致, 分布在血管周围; (8) SMA 免疫组化染色阳性(放大倍数  $10 \times 20$ ); (9) SMA 免疫组化染色阳性(放大倍数  $10 \times 40$ )

### 3. 讨论

GT 是一种比较罕见的良性间叶源性肿瘤, 主要由动静脉吻合处周围的平滑肌细胞构成[2], 在软组织肿瘤中占比不到 2% [3], 好发于手指、足趾的指(趾)端及甲床下[4], 该部位约占所有 GT 的 70%, 皮肤以外的部位如骨骼, 泌尿生殖系统、胃肠道等较为少见[3], 仅占不到 10% [5]。而发生于呼吸道的 GT 更为罕见, 以气管血管球瘤为关键词在 pubmed 及知网上检索, 目前国内外报道的病例尚不足 90 例, 以个案报道多见。

气管血管球瘤好发于中年男性[5], 最常见的临床症状为咳嗽、咯血、呼吸困难[6], 可因气道阻塞出现哮鸣音[7], 部分患者可合并哮喘[8], 也可无明显临床症状[9]。本病例主要表现为咳嗽、痰中带血, 考虑为肿瘤血管丰富, 轻度出血所致。

气管血管球瘤目前的诊断标准主要以病理学为主[10], 其病理组织学镜下表现主要为大小一致的血管球细胞, 细胞核呈圆形, 胞浆呈嗜酸性, 肿瘤内可见丰富的静脉血管, 血管球细胞在扩张的血管周围呈巢状排列[11] [12] [13]。根据血管球细胞、平滑肌细胞及血管间隙的相对比例, 可将气管血管球瘤分为实体性球瘤、球血管瘤及球血管平滑肌瘤三个亚型[14] [15]。实体性球瘤最常见, 占 75% [11], 主要以血管球细胞为主, 含有少量的血管及平滑肌细胞。而球血管瘤以血管成分较为多见, 球状细胞呈簇状分布于

扩张的静脉周围。球血管平滑肌瘤最为少见, 仅占 5%, 以血管和平滑肌成分为主。血管球瘤在免疫组织化学上主要表现为波形蛋白(Vimentin)、平滑肌肌动蛋白(SMA)及钙结合蛋白(caldesmon)阳性[16], 对 desmin、calponin 和 CD34 的表达各有差异[6] [11] [17]。本病例免疫组化与既往文献报道一致, 主要成分为血管球细胞, 内含少量血管, 血管球细胞围绕血管裂隙呈巢状分布, 考虑为实体性球瘤。

CT 检查是气管血管球瘤首选的影像学检查手段, 可以准确的显示其范围、大小及与周围组织的关系, 为临床诊断及治疗提供重要的参考。气管血管球瘤 CT 上主要表现为突向腔内的软组织密度结节, 边界清楚, 密度均匀, 通常较小, 直径约为 1.0~2.5 cm, 以单发为主[5], 多位于气管下三分之二的后壁[18], 此处的粘液腺体和血管更加丰富[11] [12], 由于其含有丰富的血管, 增强扫描呈动脉期明显均匀或不均匀强化, 静脉期强化程度进一步增加[4]。既往对于气管血管球瘤的 MRI 表现报道较为少见, 在 T1WI 加权像上表现为等或低信号, T2WI 加权像表现为均匀高信号, DWI 呈高信号, 增强扫描呈明显均匀强化, 与其他常见部位的血管球瘤表现相仿[19] [20]。本例病人的病变部位为气管颈段, 此处的血管较少, 发生于该部位的气管血管球瘤较为少见, 影像表现为边界清楚的持续性强化结节, 与既往文献一致。

气管血管球瘤需与气管内的其他肿瘤进行鉴别, 如: 1) 气管类癌, 属于低度恶性肿瘤, 多位于隆突远端, 表现为气管内软组织肿块, 边界清晰, 增强扫描呈明显强化。影像上与气管血管球瘤难以区分, 可以通过病理学及免疫组织学特征加以鉴别, 气管血管球瘤主要表现为血管球细胞聚集在扩张的静脉血管周围, 而类癌血管较少, 免疫组化表现为神经内分泌标记物(嗜铬粒蛋白、突触素)和细胞角蛋白染色阳性, 平滑肌肌动蛋白阴性[6]。2) 腺样囊性癌, 多位于气管后方及侧后方, 与腺体分布有关[21], 向粘膜下延伸, 呈环壁浸润性生长, 而气管血管球瘤呈局限性生长, 多以宽基底附着于气管后壁[22], 部分可见蒂与气管相连, Emily 等人[15]报道了一例带蒂的气管血管球瘤, 肿块呈息肉样突出于腔内。强化方式上, 区别于气管血管球瘤的明显强化, 腺样囊性癌呈低至中度强化, 两者可以通过生长方式及强化程度加以鉴别。3) 神经鞘瘤, 气管腔内结节, 边界清晰, 呈浅分叶, 肿瘤分为细胞致密区(Antoni A 区)和细胞稀疏区(Antoni B 区), 强化方式取决于两者的分布情况[21], 且肿瘤易发生囊变及坏死, 增强扫描呈明显不均匀强化。4) 副神经节瘤, 发生于气管的副神经节瘤与其他部位表现一致[23], CT 上呈早期明显强化, 延迟廓清, 无持续性强化表现, 可以通过延迟扫描与气管血管球瘤进行鉴别, MRI 增强上可见低信号的流空血管影, 称“胡椒盐征”。

#### 4. 结论

综上所述, 气管血管球瘤是一类比较罕见的疾病, 国内外报道较少, 明确诊断主要通过组织病理学。仅从影像上与其他气管内的肿瘤鉴别有一定难度, 但 CT 可判断病变的范围、大小及与周围组织的关系, 为临床诊断及治疗提供重要参考。希望通过本篇报道加深临床医生对气管血管球瘤的认识, 当发现气管内富血供的软组织结节时, 应考虑本病可能。

#### 参考文献

- [1] Acharya, S., Anwar, S., Thapa, K., et al. (2023) Pulmonary Glomus Tumor. *Cureus*, **15**, e38684. <https://doi.org/10.7759/cureus.38684>
- [2] 张新军, 朱亚玲, 王晓娟, 等. 支气管内血管球瘤二例并文献复习[J]. 中华结核和呼吸杂志, 2014, 37(10): 758-763.
- [3] Mogi, A., Kosaka, T., Yamaki, E., et al. (2011) Successful Resection of a Glomus Tumor of the Trachea. *General Thoracic and Cardiovascular Surgery*, **59**, 815-818. <https://doi.org/10.1007/s11748-010-0772-y>
- [4] 邵燕, 何海青, 罗华荣. 气管血管球瘤 1 例[J]. 实用放射学杂志, 2020, 36(6): 1013-1014.
- [5] Wang, C., Ma, Y., Zhao, X., et al. (2017) Glomus Tumors of the Trachea: 2 Case Reports and a Review of the Literature. *Journal of Thoracic Disease*, **9**, E815-E826. <https://doi.org/10.21037/jtd.2017.08.54>

- [6] Hartert, M., Wolf, M., Marko, C., *et al.* (2019) Glomus Tumor of the Trachea—Synopsis of Histology & Methodology of Treatment. *Respiratory Medicine Case Reports*, **28**, Article ID: 100905. <https://doi.org/10.1016/j.rmcr.2019.100905>
- [7] Yeom, J.-A., Jeong, Y.-J., Ahn, H.-Y., *et al.* (2022) Tracheal Glomus Tumor: A Case Report with CT Imaging Features. *Medicina*, **58**, Article No. 791. <https://doi.org/10.3390/medicina58060791>
- [8] Fukumitsu, K., Ning, Y., Kanemitsu, Y., *et al.* (2023) Tracheal Glomus Tumor Complicated with Asthma Exacerbation in a Pregnant Woman. *Internal Medicine*, **62**, 2123-2128. <https://doi.org/10.2169/internalmedicine.0510-22>
- [9] Masoum, S.H., Jafarian, A.H., Attar, A.R., *et al.* (2015) Glomus Tumor of the Trachea. *Asian Cardiovascular and Thoracic Annals*, **23**, 325-327. <https://doi.org/10.1177/0218492314528184>
- [10] Gao, M., Ye, S.-N., Lin, C., *et al.* (2022) Tracheal Glomus Tumor Misdiagnosed as Pulmonary Disease: A Case Report and Literature Review. *Brazilian Journal of Otorhinolaryngology*, **88**, S196-S204. <https://doi.org/10.1016/j.bjorl.2021.05.011>
- [11] Sakr, L., Palaniappan, R., Payan, M.-J., *et al.* (2011) Tracheal Glomus Tumor: A Multidisciplinary Approach to Management. *Respiratory Care*, **56**, 342-346. <https://doi.org/10.4187/respcare.00761>
- [12] Tan, Y., Yang, P., Deng, X., *et al.* (2015) Glomangioma of the Trachea: A Case Report and Literature Review. *Oncology Letters*, **9**, 1273-1277. <https://doi.org/10.3892/ol.2015.2871>
- [13] Kamboj, M., Durga, G., Pasricha, S., *et al.* (2020) Synaptophysin Positive Glomus Tumor of Trachea Simulating Typical Carcinoid: A Potential Trap. *Head and Neck Pathology*, **15**, 994-998. <https://doi.org/10.1007/s12105-020-01230-3>
- [14] Gombos, Z. and Zhang, P.J. (2008) Glomus Tumor. *Archives of Pathology & Laboratory Medicine*, **132**, 1448-1452. <https://doi.org/10.5858/2008-132-1448-GT>
- [15] Norder, E., *et al.* (2012) Glomus Tumor of the Trachea. *Journal of Bronchology & Interventional Pulmonology*, **19**, 220-223. <https://doi.org/10.1097/LBR.0b013e31825cee8>
- [16] 寇天雷, 何滔, 郑淑芳, 等. 2 例胃血管球瘤临床病理特征[J]. 武警后勤学院学报(医学版), 2019, 28(10): 64-66, 封 2.
- [17] 谢军, 王辉. 气管血管球瘤 1 例[J]. 诊断病理学杂志, 2017, 24(1): 72.
- [18] 秦积龙, 魏建国, 林喜娜, 等. 气管血管球瘤 10 例临床病理及分子遗传学特征分析[J]. 中华病理学杂志, 2021(9): 1051-1053.
- [19] 王芬, 徐海, 俞同福. 气管血管球瘤 MR 和 CT 诊断一例[J]. 磁共振成像, 2022, 13(3): 95-96.
- [20] Glazebrook, K.N., Laundre, B.J., Schiefer, T.K., *et al.* (2010) Imaging Features of Glomus Tumors. *Skeletal Radiology*, **40**, 855-862. <https://doi.org/10.1007/s00256-010-1067-1>
- [21] 顾梁瑞, 徐霖, 陈文. 气管内原发性神经鞘瘤 CT 表现一例[J]. 影像诊断与介入放射学, 2019, 28(4): 293-294.
- [22] 黄文鹏, 周宇涵, 李莉明, 等. 位于气管的血管球瘤二例报告[J]. 中国医师杂志, 2022(10): 1464-1467.
- [23] Kamada, M., Shimamoto, A., Mori, M., *et al.* (2021) Tracheal Paraganglioma: A Case Report and Review of the Pertinent Literature. *Internal Medicine*, **60**, 2275-2283. <https://doi.org/10.2169/internalmedicine.5705-20>