

内镜黏膜下剥离术治疗胃腺肌瘤一例及文献分析

邱远哲¹, 王伟华¹, 孙婷婷¹, 杨桂丽², 刘福国^{3*}

¹青岛大学, 山东 青岛

²菏泽市牡丹区中医院医院内科, 山东 菏泽

³青岛大学附属医院消化内科, 山东 青岛

收稿日期: 2023年11月27日; 录用日期: 2023年12月21日; 发布日期: 2023年12月28日

摘要

胃腺肌瘤(GA), 又名胃肌上皮错构瘤、平滑肌腺体错构瘤、胃腺肌瘤性错构瘤, 是胃肠道比较少见的良性肿瘤。我们在临床中发现了一例患有胃腺肌瘤的年轻女性患者并通过病理证实了它。由于该病例比较罕见, 我们报道了该病例并检索了相关文献进行文献综述。文献提示, 胃腺肌瘤发病年龄不一, 主要表现为一些非特异性的胃肠道症状。它可以通过病理诊断, 并通过内镜手术、腹腔镜手术和开放手术等多种方式进行治疗。

关键词

胃腺肌瘤, 内镜诊治, 超声内镜检查

Endoscopic Submucosal Dissection for a Case of Leiomyoma of Stomach with Literature Review

Yuanzhe Qiu¹, Weihua Wang¹, Tingting Sun¹, Guili Yang², Fuguo Liu^{3*}

¹Qingdao University, Qingdao Shandong

²Department of Internal Medicine, Mudan District Hospital of Traditional Chinese Medicine, Heze Shandong

³Department of Gastroenterology, Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

Received: Nov. 27th, 2023; accepted: Dec. 21st, 2023; published: Dec. 28th, 2023

*通讯作者。

文章引用: 邱远哲, 王伟华, 孙婷婷, 杨桂丽, 刘福国. 内镜黏膜下剥离术治疗胃腺肌瘤一例及文献分析[J]. 临床医学进展, 2023, 13(12): 20144-20149. DOI: 10.12677/acm.2023.13122835

Abstract

Gastric adenomyoma (GA), also known as gastric myoepithelial misshapenoma, smooth muscle glandular misshapenoma, and gastric adenomyoma tous misshapenoma, is a relatively rare benign tumor of the gastrointestinal tract. We identified a case of a young female patient with gastric adenomyoma in our clinic and confirmed it pathologically. As it is relatively rare, we reported the case and searched the relevant literature for a literature review. Literature suggests that gastric adenomyomas have a variable age of onset and mainly present with a number of non-specific gastrointestinal symptoms. It can be diagnosed by pathology and be treated by various modalities such as endoscopic surgery, laparoscopic surgery and open surgery.

Keywords

Gastric Adenomyoma, Endoscopic Diagnosis and Treatment, Endoscopic Ultrasonography

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

根据世界卫生组织的组织病理学分类,胃腺肌瘤(Gastric Adenomyoma, GA)是一种胃良性肿瘤,其特征是立方上皮或柱状上皮腺体结构中存在平滑肌间质[1]。Magnus-Alsleben 于 1903 年首次报道了这种疾病[2]。虽然胃腺肌瘤最常发生在胆囊,但也有少数发生在胃的病例报道。在胃的病例中,85%发生在胃窦,15%发生在幽门[2]。此外,虽然有一些患者可能会出现非特异性的胃肠道症状,例如上腹疼痛或呕吐等,但大多数病例的表现是无症状的[3]。据报道,在无症状人群中的尸检研究中发现频率为 0.6%~14% [4]。在本报告中,我们描述了一例通过内镜检查发现胃窦黏膜下隆起性病变并经内镜黏膜下剥离术(Endoscopic Submucosal Dissection, ESD)治疗术后病理确诊为胃腺肌瘤的患者并对相关文献进行了回顾。

2. 案例报道

患者,女性,24岁,因间歇性上腹痛5天于2022年6月21日在我院门诊行电子胃镜超声微探头检查,结果显示:胃窦黏膜下隆起,考虑慢性深在囊性胃炎可能性大,异位胰腺不排除(见图 1(a)~(b))。为进一步诊治以“胃良性肿瘤”收住院。既往病史:否认高血压、冠心病、糖尿病病史,否认肝炎、肺结核等传染病病史。入院查体:腹软,全腹无压痛、无反跳痛及肌紧张,肝脾肋下未触及,肠鸣音4次/min。入院后实验室检验未见明显异常,上腹部CT平扫显示:胃窦前壁局限性、结节状增厚。经主诊组讨论,考虑患者为青年女性,入院后初步诊断为胃良性病变,结合超声内镜及腹部CT结果,考虑为平滑肌瘤或异位胰腺,通常可行内镜下治疗或随访观察。但本例患者心理压力、手术意愿强,综合考虑决定行ESD治疗。排除手术禁忌后于2022年6月28日按标准操作步骤行ESD术(见图 1(c), (d), (e)),术中见黏膜下起源肿物,基底局部与固有肌层轻度粘连。手术操作顺利,术后予以抑酸、保护胃黏膜及补液营养支持等对症治疗。病理诊断:(胃窦)慢性非萎缩性胃炎,中度炎症,黏膜下层可见一界限尚清的结节样物(见图 1(f)),构成于增生的平滑肌组织及腺上皮,考虑为肌上皮性错构瘤(腺肌瘤),未累及手术切缘(见图 2(a)),

Hp (-)。免疫组织化学染色: CD117 (-), CD34 (部分+), Dog-1 (-), Ki-67 (+, 5%), S-100 (-), SMA (+) (见图 2(b)), Desmin (+), SDHB (灶+), SOX10 (-)。随访至 2023 年 10 月, 患者症状缓解, 一般情况可。

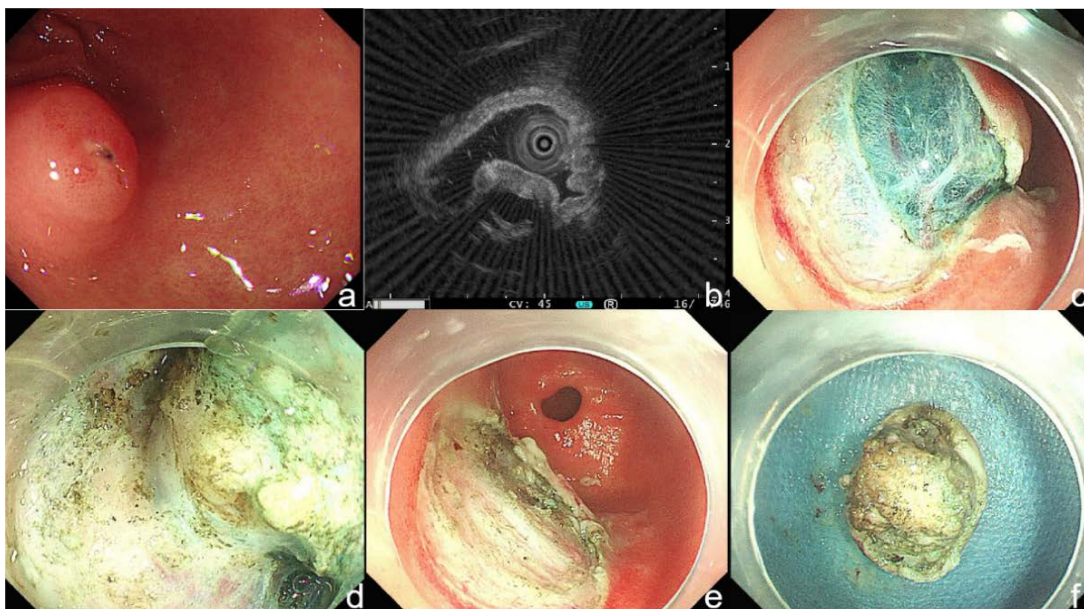


Figure 1. (a) is a gastroscopic demonstration of a submucosal elevation visible on the side of the greater curvature of the anterior wall of the gastric antrum, with a vesicle visible at the tip; (b) is an ultrasonographic endoscopic demonstration of mixed echogenic changes in the elevation, within which multiple cystic echogenic areas are visible, the larger of which is approximately 5.2×4.1 mm, with clear borders, protruding toward the lumen, originating from the submucosal layer, and with an extent of the lesion of approximately 11.9×7.5 mm; (c) is submucosal injection of ESD and stripping; (d) is localized adhesion of the lesion base to the intrinsic muscle layer; (e) is a postoperative ESD procedure, with the traumatic muscularis propria intact and without perforation; (f) is a nodular with a diameter of 0.6 cm and a tough grayish texture on the cut surface.

图 1. (a) 胃镜示胃窦前壁大弯侧可见一黏膜下隆起, 顶端可见糜烂; (b) 超声内镜示隆起处呈混杂回声改变, 内可见多发囊性无回声区域, 大者约 5.2×4.1 mm, 边界清楚, 向腔内突出, 起源于黏膜下层, 病变范围约 11.9×7.5 mm; (c) ESD 黏膜下注射并剥离; (d) 病变基底局部与固有肌层粘连; (e) ESD 术后, 创面肌层完整, 无穿孔; (f) 结节状物, 直径 0.6 cm, 切面灰白质韧

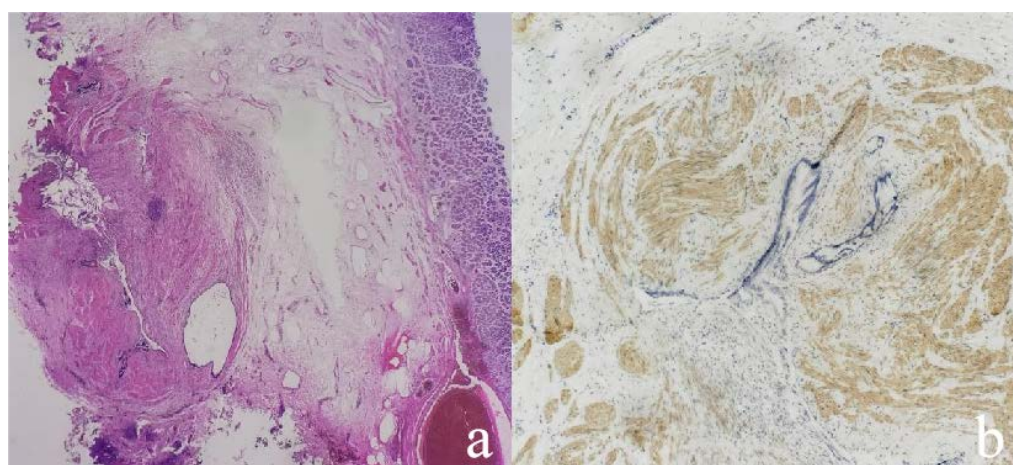


Figure 2. (a) is a well-demarcated nodule-like material visible in the submucosal layer, constituting hyperplastic smooth muscle tissue and glandular epithelium (HE $\times 40$); (b) is immunohistochemical staining SMA+ ($\times 200$)

图 2. (a) 黏膜下层可见一界限尚清的结节样物, 构成于增生的平滑肌组织及腺上皮(HE $\times 40$); (b) 免疫组化染色 SMA+ ($\times 200$)

3. 讨论

该患者临床表现缺乏特异性, 仅表现为间歇性上腹痛, 偶感泛酸、烧心, 超声内镜下表现为胃窦黏膜下隆起, 触之较韧, 与胃部其他良性疾病难以鉴别。后通过 ESD 切除病变组织活检病理学检查显示黏膜下层起源的界限尚清的结节样物, 构成于增生的平滑肌组织及腺上皮; 免疫组织化学染色显示 CD117 (-), CD34 (部分+), Dog-1 (-), Ki-67 (+, 5%), S-100 (-), SMA (+), Desmin (+), SDHB (灶+), SOX10 (-)。结合患者病史, 符合胃腺肌瘤的诊断。

错构瘤是由软骨、结缔组织、平滑肌和脂肪等间充质组织组成的肿瘤, 是一种罕见的发育异常, 每 3000~4000 个活产儿中就有 1 个发生错构瘤。这些肿块通常呈零星发展, 但也见于某些综合征, 如结节性硬化症或卡尼三联征。Eugen Albrecht 在 1904 年首次使用错构瘤一词。Albrecht 将错构瘤描述为肿瘤样的生成物, 其中器官的正常成分错误的异常混合, 这种异常混合可以体现在数量、结构、成熟程度或三者同时发生[5]。错构瘤是极少见的一种疾病, 在胃肠道中发现的错构瘤较多见于儿童和年轻人。它们可以发生在黏膜下层的任何地方, 但很少发生在从食管到肛管的胃肠道段的黏膜。在诊断时, 需要考虑到胃肠道错构瘤经常与胃肠道、胰腺、椎骨或其他器官的其他畸形有关。胃肠道错构瘤的两大主要类群是错构瘤家族性胃肠道息肉病和血管错构瘤。其他不常见的亚型包括间充质和异位错构瘤(如异位胰腺或胃黏膜、胃重复和重复囊肿) [6]。

胃腺肌瘤又名胃肌上皮错构瘤、平滑肌腺体错构瘤、胃腺肌瘤性错构瘤, 是胃肠道比较少见的良性肿瘤[7]。GA 可发生在胃的任何部位, 但最常见于胃窦[8], 发病原因可能是胚胎时期正常组织发育及组合异常。组织学上, GA 由肥大的平滑肌带组成, 周围包含多种上皮成分, 如囊性腺结构、幽门腺和胰腺腺泡[8]。围绕各种上皮成分的肥厚平滑肌带可以以不同的方式排列(作为简单的腺体结构, 如布伦纳腺, 作为胰管, 偶尔作为胰腺泡)代表了这种肿瘤的主要组织学特征[11]。由于 GA 与胰管上皮成分的相似性, 关于 GA 是否属于异位胰腺的一种类型尚存在争议。异位胰腺定义为存在与正常胰腺间缺乏血管、神经和解剖连续性的异常胰腺组织, 在组织学上由正常的胰腺腺泡和胰管组成, 偶尔有胰岛。有学者认为腺肌瘤是异位胰腺的一种形式, 即不包含其内分泌或外分泌的成分[8]。Yamagiwa 等[9]将异位胰腺分为三种类型: I 型(包含所有胰腺组织的成分)、II 型(包含胰腺组织无胰岛)、III 型(仅包含胰腺导管)。GA 属于异位胰腺的 III 型[10]。另有学者倾向于 GA 是平滑肌与腺体之间无序增殖紊乱而形成的肿瘤样物, 而不仅仅是上皮的异位。临床上胃腺肌瘤和异位胰腺通常在手术、内窥镜检查或尸检中发现, 其中胃腺肌瘤是非常罕见的, 而异位胰腺通常是偶然发现的。在尸检研究中, 异位胰腺报告的频率为 0.6%~14% [11]。虽然异位胰腺通常临床上无症状, 但也有并发症的报道, 包括肿块形成、胰腺炎和梗阻[12] [13]。胃窦是异位胰腺组织最常见的部位。病变通常位于幽门前, 沿着胃大弯, 较少发生在肠道、胆道、肠系膜和网膜。

大多数胃 AM 病例发生在没有症状或有非特异性胃肠道症状的成年人中。患者的年龄从 1 周到 81 岁不等[14], 大多数患者(2/3)的病变是在 40 岁到 60 岁之间发现的[15]。这类病变多数可以在在胃窦(85%)和幽门(15%)中观察到, 它们表现出一些非特异性症状: 如间歇性胃痛、恶心和呕吐, 并在某些患者中引起间歇性幽门梗阻甚至局部腹膜炎[16]。在报道中见到的大多数的胃 AM 的病例是在进行上消化道钡餐检查中诊断出来的, 其他的病例则是在手术或尸检过程中偶然发现的。

从外观上看, 错构瘤通常在黏膜下组织中表现为圆形或椭圆形肿块, 类似于脂肪瘤、神经纤维瘤或其他息肉样病变, 近年来 CT 和超声内镜(EUS)等较新的诊断技术已经出现, 2002 年首次通过 EUS 描述了胃腺肌瘤, 表现为一枚与胃黏膜下层有关的, 其囊性中心排列有高回声边缘[17]。一般来说内窥镜检查对错构瘤和平滑肌瘤、黑色素瘤、淋巴瘤、类癌瘤、卡波西肉瘤或嗜酸性肉芽肿进行鉴别诊断是十分困

难的[18],在大多数病例中,内窥镜活检是浅表的,无法获得代表性的肿瘤组织,这些肿瘤均可表现为黏膜下肿块的形式,并可伴有胰腺的中央异位。内镜超声引导下细针穿刺(EUS-FNA)的应用相对来说就更加少见,如果有任何肿瘤细胞进入针道,EUS-FNA也有传播的风险,且其费用相对较高[10]。从组织学上看,胃腺肌瘤呈现出围绕不同上皮成分的肥厚平滑肌带,这些上皮成分可以以不同的方式排列:作为简单的腺体结构、布伦纳腺、胰管,偶尔还有胰腺泡。特别的是,在约三分之一的患者中检测到无病变的异位胰腺组织巢[15]。需要特别注意的是,在组织学上,位于黏膜下层或肌层的腺体结构也可能是腺癌的可疑组织,我们可以通过仔细观察细胞的有丝分裂活性、与周围组织的关系以及细胞核的外观来鉴别[19]。因此在实际应用中,冰冻切片有助于术中诊断,避免不必要的扩大手术[20]。

在明确诊断错构瘤的情况下,手术(瘤体较大或怀疑为恶性)和腹腔镜楔形切除术(当出现胃窦或幽门壁增厚时)以及内镜下息肉切除术和黏膜下剥离术(针对息肉样外观)是常用的切除方法[19]。近年来有研究者证明,内镜黏膜下剥离术(ESD)对于病变直径 < 3 cm 的胃腺肌瘤来说是一种有效,安全,可行的治疗方法[10]。但是因为错构瘤大多数位于黏膜下层,且其术前诊断较为复杂且困难,因此 Hedembro 等人提出了对所有疑似胃病病变病例进行手术切除以确保正确的治疗的建议[15]。一般来说,胃息肉被学者们认为癌变风险较低,而与 HP 感染直接相关的增生性腺瘤性息肉和胃底腺性息肉则肿瘤变性的风险较高。有 2.1% 的增生性胃息肉中检测出癌症[21], 1.6% 的胃错构性息肉中检测出癌症。有过与恶性肿瘤相关的胃错构瘤的病例的文献报道,但在这些病例中,肿瘤往往是在错构瘤的报告出现之前被诊断的。有报道总结了 9 名胃腺肌瘤患者,其中 5 名被发现出现恶性变[22]。但所有五名患者被诊断出患有胃癌均是在确定腺肌瘤之前。虽然两种病理之间的关系尚无确论,但不能完全排除腺肌瘤恶变的可能性,因此这种病变癌化的风险仍然是一个悬而未决的问题,必要时可选择对其根治性手术。另外也有学者怀疑胃腺肌瘤的良恶性与幽门螺杆菌感染之间的关系[23],此项问题待于进一步研究。

4. 结论

总之,当发现患者胃内出现黏膜下肿块,并伴有非特异性的胃肠道表现时,应注意与胃腺肌瘤相鉴别,积极留取活检。胃腺肌瘤可以通过组织病理学进行确诊。对于诊断明确的胃腺肌瘤,首选切除治疗。对于手术切除后是否行放化疗,目前暂无明确的建议。

参考文献

- [1] Nabi, J., Authoy, F.N. and Akhter, S.M. (2012) Atypical Presentation of Myoepithelial Hamartoma in the Antrum of the Stomach, Mimicking a Gastrointestinal Stromal Tumor: A Case Report. *Journal of Medical Case Reports*, **6**, Article No. 382. <https://doi.org/10.1186/1752-1947-6-382>
- [2] Yoon, K.H., Eun, D.Y., Kim, J.H., et al. (2014) Gastric Adenomyoma in the Stomach Body: A Case Report. *Journal of Medical Case Reports*, **8**, Article No. 385. <https://doi.org/10.1186/1752-1947-8-385>
- [3] Sakurai, Y., Togasaki, K., Nakamura, Y., et al. (2023) Gastric Type III Heterotopic Pancreas Presenting as Adenomyoma in the Antrum of the Stomach: A Case Report. *Clinical Journal of Gastroenterology*. <https://doi.org/10.1007/s12328-023-01872-0>
- [4] Zaresharifi, N., Khalili, A., Eftekhari, B. and Layegh, H. (2023) Ectopic Pancreatic Tissue in a Cholecystectomy Specimen: A Rare Incidental Pathologic Finding. *Clinical Case Reports*, **11**, e7961. <https://doi.org/10.1002/ccr3.7961>
- [5] Leiter Herrán, F., Restrepo, C.S., Alvarez Gómez, D.I., et al. (2017) Hamartomas from Head to Toe: An Imaging Overview. *The British Journal of Radiology*, **90**, Article ID: 20160607. <https://doi.org/10.1259/bjr.20160607>
- [6] Gurzu, S., Burlacu, D. and Jung, I. (2022) Nonpolypous Hamartomas of the Gastrointestinal Tract: An Updated Review on Classification, Denominations, and Clinical Management. *Journal of Oncology*, **2022**, Article ID: 6983460. <https://doi.org/10.1155/2022/6983460>
- [7] 贾平, 朱振, 夏巍, 等. 胃体肌上皮错构瘤一例[J]. 中华消化病与影像杂志(电子版), 2017, 7(3): 139-140.
- [8] Tanaka, T., Nishida, K., Iwamuro, M., et al. (2021) A Case of Myoepithelial Hamartoma: Morphological Variation

Supported by OCT4 Expression. *Case Reports in Gastrointestinal Medicine*, **2021**, Article ID: 6617370.

<https://doi.org/10.1155/2021/6617370>

- [9] Yamagiwa, H., Ishihara, A., Sekoguchi, T., *et al.* (1977) Heterotopic Pancreas in Surgically Resected Stomach. *Gastroenterologia Japonica*, **12**, 380-386. <https://doi.org/10.1007/BF02774535>
- [10] Wang, S., Cao, H., Zhang, Y., *et al.* (2017) Endoscopic Submucosal Dissection for Gastric Adenomyoma: A Rare Entity of 15 Cases among 571 Patients with Gastric Submucosal Eminence Lesions. *Medicine*, **96**, e6233. <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000006233>
- [11] Dolan, R.V., Remine, W.H. and Dockerty, M.B. (1974) The Fate of Heterotopic Pancreatic Tissue: A Study of 212 Cases. *Archives of Surgery*, **109**, 762-765. <https://doi.org/10.1001/archsurg.1974.01360060032010>
- [12] Kagawa, S., Fujiwara, T., Nishizaki, M., *et al.* (2007) Adenomyoma of the Stomach Presenting as Localized Peritonitis. *Digestive Diseases and Sciences*, **52**, 3184-3187. <https://doi.org/10.1007/s10620-006-9390-z>
- [13] Li, K., Xu, Y., Liu, N.B., *et al.* (2021) Asymptomatic Gastric Adenomyoma and Heterotopic Pancreas in a Patient with Pancreatic Cancer: A Case Report and Review of the Literature. *World Journal of Clinical Cases*, **9**, 8147-8156. <https://doi.org/10.12998/wjcc.v9.i27.8147>
- [14] Rhim, J.H., Kim, W.S., Choi, Y.H., *et al.* (2013) Radiological Findings of Gastric Adenomyoma in a Neonate Presenting with Gastric Outlet Obstruction. *Pediatric Radiology*, **43**, 628-630. <https://doi.org/10.1007/s00247-012-2521-0>
- [15] Portale, T.R., Mosca, F., Vicari, S., *et al.* (2007) Myoepithelial Hamartoma of the Stomach Simulating a Gastric Carcinoma: A Case Report. *Tumori Journal*, **93**, 220-222. <https://doi.org/10.1177/030089160709300222>
- [16] Chapple, C.R., Muller, S. and Newman, J. (1988) Gastric Adenocarcinoma Associated with Adenomyoma of the Stomach. *Postgraduate Medical Journal*, **64**, 801-803. <https://doi.org/10.1136/pgmj.64.756.801>
- [17] Chu, K. (2002) Endosonographic Appearance of Gastric Adenomyoma. *Endoscopy*, **34**, 682. <https://doi.org/10.1055/s-2002-33248>
- [18] Zarling, E.J. (1981) Gastric Adenomyoma with Coincidental Pancreatic Rest: A Case Report. *Gastrointestinal Endoscopy*, **27**, 175-177. [https://doi.org/10.1016/S0016-5107\(81\)73186-9](https://doi.org/10.1016/S0016-5107(81)73186-9)
- [19] Shah, A., Ahmed, Z., Ro, J.Y. and Ergun, G.A. (2022) Polypoid Gastric Adenomyoma: A Rare Cause of Bleeding Treated with Polypectomy. *ACG Case Reports Journal*, **9**, e00895. <https://doi.org/10.14309/crj.0000000000000895>
- [20] Zhu, H.N., Yu, J.P., Luo, J., *et al.* (2010) Gastric Adenomyoma Presenting as Melena: A Case Report and Literature Review. *World Journal of Gastroenterology*, **16**, 1934-1936. <https://doi.org/10.3748/wjg.v16.i15.1934>
- [21] Borch, K., Skarsgård, J., Franzén, L., *et al.* (2003) Benign Gastric Polyps: Morphological and Functional Origin. *Digestive Diseases and Sciences*, **48**, 1292-1297. <https://doi.org/10.1023/A:1024150924457>
- [22] Ling, C.H. and Situ, Z.X. (1985) [Gastric Adenomyoma: With Report of 9 Cases]. *Chinese Journal of Surgery*, **23**, 424-425.
- [23] Ly, D.P., Barnard, N.J. and Schwarz, R.E. (2004) Gastric Adenomyoma: Definitely Benign or Defiantly Premalignant? *Digestive Diseases and Sciences*, **49**, 1930-1934. <https://doi.org/10.1007/s10620-004-9594-z>