·经验交流·

脾脏硬化性血管瘤样结节性转化9例临床分析

赵军杰 支秋丽 谢一平

脾脏硬化性血管瘤样结节性转化(sclerosing angiomatoid nodular transforma-tion of spleen, SANT)是一种罕见的良性非肿瘤性病变,仅占脾脏良性占位性病变的1.68%[1]。该病由Martel等于2004年正式命名,由于临床罕见且缺乏特异症状,术前往往被误诊为血管瘤、血管肉瘤、错构瘤等病变[2]。本次研究对9例经病理学证实为SANT患者的临床资料进行回顾性分析。现报道如下。

1 资料与方法

1.1 一般资料 选择2008年6月至2019年6月期间宁海县城关医院、温州医科大学附属慈溪医院、慈溪市红十字医院诊治的9例SANT患者,其中男性5例、女性4例;年龄42~68岁,中位年龄55.00岁。9例均经手术病理学确诊,临床资料完整。本次研究符合医学伦理的相关要求,患者及其近亲属均知情同意。

1.2 方法 回顾性分析9例SANT患者的临床表现、实验室检查、影像学表现、治疗方法、病理学及随访结果。

2 结果

2.1 临床表现 9例中2例无明显症状因意外发现脾脏病变,其余7例均出现程度不等的左上腹隐痛不适,病史15 d~7个月。9例均无发热、出血及感染倾向,无纳差、乏力、消瘦、呕吐及腹泻等症状。6例体格检查出现左上腹轻压痛,无明显反跳痛;4例脾脏轻度肿大并可隐约触及质韧肿块,腹部体表无红、肿、热、痛等异常。

2.2 实验室检查 9例中1例年轻女性患者轻微贫血(红细胞3.4×10⁹/L,血红蛋白98 g/L,红细胞比容37%,白细胞及血小板正常),其余8例均未见明显贫血,9例尿常规、大便常规、肝、肾功能及肿瘤学标志物包括癌胚抗原(carcinoem-bryonic antigen, CEA)、甲胎蛋白(alpha fetoprotein, AFP)、糖类抗原19-9(carbohydrate antigen19-9, CA19-9)、糖类抗125(carbohydrate antigen125, CA125)检查均正常。

2.3 影像表现 9例均为单发,共9个病灶。位于脾脏上极2个、下极5个、中部2个。6个位于脏面,其中3个位于脾门区域,3个位于膈面。病灶最大直径约4.5~10.9 cm,平均(7.12±1.36)cm。6个呈较规则的类圆形,3个稍呈不规则分叶状。病灶所在区域脾脏局限增大,5个突出脾脏轮廓但主体位于脾内,周边结构未见侵犯。9例病例均未见腹腔积液,周边结构未见侵犯、破坏,未见邻近及远处转移,腹腔及腹膜后未见肿大淋巴结。

2.3.1 超声表现 5个边界较清楚,4个边界欠清。2个呈较均匀的等回声,6个呈不均匀较低回声,病灶内见星芒状、放射状的较高回声,1个呈不均匀的较高及较低混杂回声,中心见强回声的点状钙化。4个外周见等回声的假包膜结构。彩色多普勒血流显像(color doppler flow imaging, CDFI)显示9例9个病灶周边及中心均见点状、短线样血流信号。

2.3.2 MRI表现 平扫9个病灶信号均混杂。7个T1WI及T2WI均呈等、低混杂信号,1个呈T1WI等及较低、T2WI较低及较高混杂信号,1个呈T1WI较低及较高、T2WI低及较低混杂信号(见封三图2a、b)。5个边界较清晰,T2WI上周边见低信号的假包膜,另外4个边界欠清。扩散加权成像(diffusion weighted - imaging, DWI)上9个均未见高信号,以低信号为主,内部混杂斑、点等信号(见封三图2c);表观弥散系数(apparent diffusion coefficient, ADC)图均以不均匀高信号为主,混杂斑点等信号(见封三图2d)。

DOI:10.13558/j.cnki.issn1672-3686.2022.001.019

作者单位:315600 浙江宁波,宁海县城关医院放射科(赵军杰);温州医科大学附属慈溪医院放射科(支秋丽);慈溪市红十字医院放射科(谢一平)

通讯作者:支秋丽,Email:308438931@qq.com

MRI增强7个病灶主体动脉期及静脉期明显强化接近正常脾组织，2个轻度强化接近腹壁肌肉；延迟期9个均较明显强化，内部见小条片状未强化区域，7个呈典型“轮辐征”（见封三图2e）。

2.4　治疗及病理学　9例均经外科手术治疗，其中5例于硬膜外麻醉下行开腹脾脏切除术，4例于全麻下行经腹腔镜脾脏切除术，均完整切除病灶。术后病理学显示9个大体标本均呈实性；切面灰白，质韧；内部见不规则灰白色星芒状瘢痕组织，未见囊变坏死。镜下病变区脾脏结构破坏，代之以多结节状血管瘤样构象，结节内为分支状或不规则扩张的血管腔隙，内衬肥胖内皮细胞，结节间为伴广泛纤维化和玻璃样变的间质，其内见淋巴细胞、浆细胞浸润及含铁血黄素沉积，无明显细胞异形性及核分裂（见封三图2f）。免疫组化结果：9例结节区内皮细胞簇分化抗原31（cluster of differentiation 31，CD31）（+++）、平滑肌肌动蛋白（smooth muscle actin，SMA）（+～+++）、簇分化抗原68（cluster of differentiation 68，CD68）（+～+++），5例簇分化抗原8（cluster of differentiation8，CD8）（+～++），3例簇分化抗原34（cluster of differentiation 34，CD34）（+）。

2.5　术后随访　9例均以电话及门诊复查的形式获得随访。随访间隔6～12个月，9例患者随访时间28～66个月，中位数46个月 。末次随访经超声及CT检查，9例均未见病灶复发或转移。

3　讨论

SANT曾被称为“索状毛细血管瘤”、“多结节性血管瘤”、“血管内皮瘤”等[1]。多见于30～60岁女性，发病机制尚不明确[3]。临床症状多为左上腹部疼痛不适，查体可发现脾肿大，伴有轻度压痛，但一般无脾功能亢进[2]。本组资料9例SANT中男性多于女性；7例临床出现程度不等的左上腹隐痛，2例无明显症状。绝大多数SANT为单发，多发者极为罕见[4]。其病理学特征为纤维硬化间质内部形成多个血管瘤样结节，呈外围“环状”、内部“辐射状”排列；纤维硬化间质近呈“星芒状”[1]。镜下血管瘤样结节中央可见裂隙样或窦样血管腔，其间伴有不等量的淋巴细胞、浆细胞浸润及含铁血黄素沉积，周围为同心圆状增生的纤维结缔组织[4]。免疫组化其血管瘤样结节由毛细血管、小静脉、窦性腔隙三种血管腔隙组成，不同于其他的血管源性病变如血管瘤、窦岸细胞血管瘤及错构瘤[1]。

SANT的病理学基础决定了其影像学表现。病理学上由周边环状、内部辐射状血管瘤样结节和内部星芒状纤维硬化间质组成，并伴内部淤血及含铁血黄素沉积[4]。本组9例在灰阶超声图像上病灶多呈混杂的较高、等或低回声，边界清或不清；纤维硬化间质内部形成的多个血管瘤样结节呈周边“环状”、内部“辐射状”排列，于CDFI图像见外周环状、内部放射状的血流信号。内部纤维硬化间质结构致密，呈瘢痕样“星芒状”排列，呈较强回声，具有一定特征[5]。

MRI具有多参数、多序列成像的优势，有利于不同组织成分的鉴别[6]。SANT平扫T1WI可呈低、稍低、等甚至较高混杂信号，T2WI 呈较低、等或较高混杂信号，这取决于不同病理组织的分布及比例[7]。本组9例9个病灶中7个呈T1WI及T2WI等、低或较低混杂信号，仅2个分别于T1WI及T2WI上见斑点较高信号。结合术后病理，证实T1WI低及较低信号为血管瘤样结节，较高信号为含铁血黄素及纤维硬化间质；而T2WI较低信号为含铁血黄素和纤维硬化间质，较高信号为血管瘤样结节。此外9个病灶DWI均呈等、低信号，ADC图呈不均匀高信号，也支持良性病变的诊断。

增强MRI上本组7个病灶呈持续明显强化，另外2个早期强化不明显，至延迟期也明显强化，但内部均见未强化区域，病理证实为星芒状的硬化纤维间质而非囊变坏死。明显强化的血管瘤样结节与无强化的星芒状纤维间质对比明显，7个呈较典型的“轮辐征”，与其病理学特征相符合。

SANT作为一种良性病变，病史一般较长，发现时往往体积较大，导致相应脾脏形态饱满，可累及脾脏边缘甚至突破脾脏包膜[3,7]。本组9例即是如此，5个突出脾脏轮廓，但主体均位于脾脏内，周边结构未见侵犯及转移，未见腹腔积液、腹腔及腹膜后肿大淋巴结，符合良性病变的特点。临床诊断时，SANT需与以下疾病进行鉴别诊断：①血管肉瘤：肿瘤体积多巨大导致脾脏增大，内见坏死、出血，超声回声不均，CDFI血流信号丰富；MRI信号混杂，T2WI及DWI呈高信号，增强明显不均质强化但无“轮辐征”，恶性程度高，发展快，易转移。②错构瘤：超声呈实质性团状混杂回声，CDFI瘤内及周边血流丰富；MRI增强早期轻度强化，延迟期显著强化，高于正常脾组织，无“轮辐征”；临床往往伴有贫血、血小板减少、发热、出血及感染倾向。③血管瘤：超声呈圆或椭圆形不均质的高回声，边界清楚，

（下转第71页）

效果更好。同时，本次研究经*logistic*回归析结果显示，LAR能够作为影响急性脑出血早期神经功能恶化的危险因素，由此可见LAR与脑出血预后存在明显关系，能够作为评估患者预后的早期预测指标。

综上所述，LAR水平在早期神经功能恶化患者中升高，并随着入院时间的延长而不断变化，LAR有望作为预测急性脑出血出现早期神经功能恶化的有效因子。但本次研究为小样本单中心研究，且对于早期神经功能恶化的评估存在一定主观性，且未进行长期随访，希望未来能进性大样本、多中心研究，并增加长期预后随访。

参考文献

1 王星辰，杨文松，李瑞，等.急性脑出血早期神经功能恶化与预后相关性研究[J].第三军医大学学报，2018，40(12)：1120-1124.

2 董鑫，汪海岩.术前乳酸脱氢酶/白蛋白比值在进展期胃癌中的预后分析[J].科学技术与工程，2019，19(29)：73-76.

3 Lord AS，Gilmore E，Choi HA，et al.Time course and predictors of neurological deterioration after intracerebral hemorrhage[J].Stroke，2015，46(3)：647-652.

4 中华医学会神经病学分会，中华医学会神经病学分会脑血管病学组.中国脑出血诊治指南(2019)[S].中华神经科杂志，2019，52(12)：994-1005.

5 施雪英，袁良津，蒋鸣坤，等.自发性脑出血神经功能恶化的相关因素临床分析[J].安徽医药，2018，22(7)：1286-1289..

6 杨修昭.中性粒细胞/淋巴细胞比值预测急性脑出血后神经功能恶化的价值评估[J].中西医结合心脑血管病杂志，2019，17(24)：4086-4089.

7 石艳芬，陈源清.血清炎性因子浓度对急性脑出血恶化的预测价值[J].医疗装备，2018，31(14)：54-55.

8 Zhang D，Yan H，Wei Y，et al.C-reactive protein/albumin ratio correlates with disease severity and predicts outcome in patients with aneurysmal subarachnoid hemorrhage[J].Front Neurol，2019，10：1186.

9 卓芬，肖华，黄娟娟，蔡月红.血清白蛋白及中性粒细胞/淋巴细胞比值预测创伤性脑出血患者预后的价值[J].中国急救医学，2019，39(5)：408-411.

10 李海燕，黄杰，陆玥，等.急性脑出血血严重程度与脑脊液生化指标的相关性研究[J].国际检验医学杂志，2020，41(2)：248-250.

11 Lattanzi S，Brigo F，Trinka E，et al.Neutrophil-to-lymphocyte ratio in acute cerebral hemorrhage：A system review[J].Transl Stroke Res，2019，10(2)：137-145.

（收稿日期 2021-01-31）
（本文编辑 高金莲）

（上接第69页）

内部无回声与强回声间隔，CDFI可见脾动脉或脾静脉分支穿行；MRI呈T1WI低T2WI高信号，边界清晰，信号均匀；增强扫描呈“快进慢出”强化模式，无“轮辐征”及假包膜。

SANT的治疗主要是外科手术切除，作为一种良性病变，SANT经单纯脾脏切除术即可达到完全治愈。腹腔镜下脾脏切除术是治疗SANT的一种安全、有效的方法，具有创伤小、恢复快的优势。本组9例中经传统开腹手术5例，腹腔镜下脾脏切除术4例，手术过程均顺利，经随访28至66个月，均未见复发或转移。本文的局限性在于：①本病为罕见病，病例数较少，研究对象仅9例，需积累更多病例进行临床、影像及病理学研究；②部分病例的随访时间较短，最短者28个月，需要延长随访时间进行临床观察。

参考文献

1 曹培龙，王凯，王春宝，等.脾硬化性血管瘤样结节性转化7例临床病理分析[J].诊断病理学杂志，2017，24(1)：41-44.

2 赵芳，马周鹏.脾脏硬化性血管瘤样结节性转化的CT诊断与鉴别[J].肝胆胰外科杂志，2020，32(8)：484-487.

3 Raffaella V，Davide S，Alessandro P，et al.Sclerosing angiomatoid nodular transformation (SANT) of the spleen：A case report on CT and MRI[J].BJR Case Rep，2019，5(2)：20180036.

4 杨大为，杨正汉，王振常，等.脾脏硬化性血管瘤样结节性转化的CT、MRI表现[J].医学研究杂志，2018，47(8)：54-57，62.

5 张秀娟，陈志奎，钱清富，等.脾脏硬化性血管瘤样结节性转化超声表现[J].中国医学影像技术，2019，35(7)：1053-1056.

6 林柳妹，王一帆.胰腺囊性肿瘤的临床诊治[J].全科医学临床与教育，2019，17(6)：501-503.

7 Niu M，Liu A，Wu J，et al.Sclerosing angiomatoid nodular transformation of the accessory spleen：A case report and review of literature[J].Medicine (Baltimore)，2018，97 (26)：e11099.

（收稿日期 2021-07-27）
（本文编辑 高金莲）