

食管海绵状淋巴管瘤1例并文献复习

刘莲花, 刘模荣

刘莲花, 刘模荣, 遵义医学院附属医院消化内科 贵州省遵义市 563003

刘莲花, 在读硕士, 主要从事消化系统疾病的防治研究。

作者贡献分布: 刘莲花负责文章起草及资料的收集; 刘模荣负责该例患者的诊断、治疗及文章的修改。

通讯作者: 刘模荣, 主任医师, 硕士生导师, 563003, 贵州省遵义市汇川区大连路149号, 遵义医学院附属医院消化内科。zylmr@163.com

电话: 0852-8609224

收稿日期: 2015-06-27 修回日期: 2015-07-13

接受日期: 2015-07-24 在线出版日期: 2015-08-18

Esophageal cavernous lymphangioma: A case report and literature review

Lian-Hua Liu, Mu-Rong Liu

Lian-Hua Liu, Mu-Rong Liu, Department of Gastroenterology, Affiliated Hospital of Zunyi Medical College, Zunyi 563003, Guizhou Province, China

Correspondence to: Mu-Rong Liu, Chief Physician, Department of Gastroenterology, Affiliated Hospital of Zunyi Medical College, 149 Dalian Road, Huichuan District, Zunyi 563003, Guizhou Province, China. zylmr@163.com

Received: 2015-06-27 Revised: 2015-07-13

Accepted: 2015-07-24 Published online: 2015-08-18

Abstract

Lymphangioma is a soft tissue tumor made up of lymphatic vessels with cavernous dilation. As a kind of hamartoma, only 1% of lymphangioma cases occur in the gastrointestinal tract. Esophageal cavernous lymphangioma is an extremely rare lymphangioma of the esophagus. It has no obvious clinical characteristics and is therefore misdiagnosed easily. This disease is diagnosed mainly by endoscopy and endoscopic ultrasonography, and definitive diagnosis relies on histopathology. Esophageal lymphangiomas are benign tumors, and no

malignant transformation has been reported. In order to improve clinicians' awareness of the disease, we also performed a literature review.

© 2015 Baishideng Publishing Group Inc. All rights reserved.

Key Words: Esophageal cavernous lymphangioma; Diagnosis; Treatment

Liu LH, Liu MR. Esophageal cavernous lymphangioma: A case report and literature review. *Shijie Huaren Xiaohua Zazhi* 2015; 23(23): 3813-3816 URL: <http://www.wjgnet.com/1009-3079/23/3813.asp> DOI: <http://dx.doi.org/10.11569/wcjd.v23.i23.3813>

摘要

淋巴管瘤是一种由海绵状扩张的淋巴管组成软组织肿瘤, 属于错构瘤的一种, 只有1%发生于胃肠道, 其中发生在食管的淋巴管瘤极其罕见。食管海绵状淋巴管瘤是发生于食管的淋巴管瘤的一种类型, 因该病无明显特征性临床表现, 极易被误诊, 该病主要检查为胃镜检查及超声内镜等, 确诊需结合组织病理学检查。食管淋巴管瘤属于良性肿瘤, 现暂无恶性病变的报道, 通过对本例食管海绵状淋巴管瘤的探讨和对既往已经报道文献进行复习, 以提高临床医师对该病的认识。

© 2015年版权归百世登出版集团有限公司所有。

关键词: 食管海绵状淋巴管瘤; 诊断; 治疗

核心提示: 食管海绵状淋巴管瘤发病罕见, 该病早期无特异性症状及体征, 其临床表现与食管平滑肌瘤、间质瘤、食管结核等极其相似, 故

背景资料

食管海绵状淋巴管瘤发病率低, 本病因无特异性症状及体征极易被误诊, 该病主要发生于食管下段, 肿瘤瘤体过大可引起一系列消化道症状, 从而影响患者生活质量, 提高对该病的认识以及如何治疗该病是广大医务工作者急需探讨的急切问题。

同行评议者

姜春萌, 教授, 大连医科大学附属第二医院消化科

■ 研究前沿

食管海绵状淋巴管瘤可随着发病时间的推移, 肿瘤瘤体逐渐增大, 该病病变主要起源于黏膜层, 主要与淋巴管系统的异常有关, 虽然目前该病暂无恶变病例的报道, 但是否会发生恶化仍有待于进一步研究。

临床上极易被误诊、漏诊。本文通过探讨食管海绵状淋巴管瘤的症状、体征及诊断, 提出目前对该病的最佳诊断及治疗措施。

刘莲花, 刘模荣. 食管海绵状淋巴管瘤1例并文献复习. 世界华人消化杂志 2015; 23(23): 3813–3816 URL: <http://www.wjgnet.com/1009-3079/23/3813.asp> DOI: <http://dx.doi.org/10.11569/wcjd.v23.i23.3813>

0 引言

食管海绵状淋巴管瘤(esophageal cavernous lymphangioma)是食管淋巴管瘤的一种类型, 属于食管肿瘤中极其罕见良性肿瘤, 儿童多发, 预后好。其中食管海绵状淋巴管瘤我国既往的报道中仅有3例^[1-3], 遵义医学院附属医院消化内科收治该病患者1例, 因食管海绵状淋巴管瘤无特征性症状及体征, 入院时被误诊为食管乳头状瘤, 后于超声内镜下行肿瘤瘤体病理活检后确诊, 本例患者给予镜下肿瘤黏膜剥脱术(endoscopic mucosal resection, EMR)治疗, 术后予制酸、止血及保护胃黏膜等对症支持治疗, 术后恢复可, 现报道如下。

1 病例报告

患者女, 28岁, 因“反复上腹痛1 mo”入院, 1 mo前患者无明显诱因出现上腹部疼痛, 呈阵发性发作, 疼痛与进食无关, 偶伴反酸、呃逆, 无咽喉部梗阻感及吞咽不适, 无恶心、呕吐, 无呕血与黑便。既往1年前于外院行相关检查发现“贫血”, 余既往史无特殊。查体: 体温36.2℃; 呼吸频率19次/分, 脉搏72次/分, 血压102/62 mmHg。发育正常, 睑结膜及全身皮肤黏膜无苍白, 咽部无充血, 腹软, 无压痛、反跳痛及肌肉紧张, 余查体未见异常。辅助检查: 血常规示白细胞总数 $4.0 \times 10^9/L$, 血红蛋白125 g/L, 血小板总数 $59 \times 10^9/L$, 余值未见明显异常。肝功能、肾功能、血脂、凝血功能、血糖及电解质均无异常, 乙型肝炎两对半、梅毒螺旋体血凝试验均未见异常。胃镜: 食管下段距门齿36 cm近贲门处见一条状黏膜隆起, 表面糜烂, 乳白色(图1A)。超声内镜(20 MHz超声探头): 内镜下见食管下段近贲门处有一条索状黏膜隆起, 表明糜烂, 呈乳白色, 质软。超声探头示病灶处食管管壁层次结构完整, 见中高回声光团, 病变起源于黏膜层, 大小约0.4 cm×0.9

cm(图1B)。病理光学显微镜检查所见: (食管黏膜)组织呈乳头样增生的鳞状上皮, 内膜内见大量扩张淋巴管(图2A)。病理诊断: (食管黏膜)组织呈乳头样增生的鳞状上皮。2015-05-21病理检查: (食管黏膜)组织被覆鳞状上皮呈内翻性乳头状瘤样增生, 内膜内见大量扩张淋巴管(图2B)。病理诊断: (食管)海绵状淋巴管瘤。超食管海绵状淋巴管瘤诊断明确。遂于内镜下行食管肿瘤EMR, 术后予制酸、止血及保护胃黏膜等对症支持治疗, 病愈出院。

2 讨论

淋巴管瘤属于错构瘤的一种, 儿童多发, 预后好, 目前暂无恶性变病的报道。淋巴管瘤可发生在全身任何有淋巴组织的部位, 以头颈部及腋下最常见, 仅有1%发生于胃肠道及腹腔^[4], 其中食管为淋巴管瘤发生率最低的部位^[5], 多位于食管下段。目前淋巴管瘤的病因尚不十分明确: 可能的机制如下^[6]: (1)胚胎早期异常淋巴组织形成的先天性良性肿瘤; (2)淋巴结与周围的淋巴系统及静脉系统连接异常形成的先天性畸形所致^[6]; (3)因外伤、炎症、寄生虫等后天因素导致淋巴管内皮增生、淋巴管扩张及淋巴梗阻形成^[7]。有文献报道^[8], 淋巴管瘤分4型: (1)毛细淋巴管瘤又称单纯性淋巴管瘤; (2)海绵状淋巴管瘤; (3)蔓状淋巴管瘤; (4)囊状淋巴管瘤又称囊状水瘤。其组织学改变: 肿块内可由单层扁平上皮内衬组成的大小不等的腔隙, 腔内充满含有淋巴细胞的淋巴液^[9,10]。其病理改变: 主要为淋巴管扩张、增生和结构紊乱, 向周围浸润性生长^[11]。

食管淋巴管瘤目前国内外少有报道^[12], 通过检索万方、维普、CNKI、CBM、Pubmed等数据库, 目前共检索到19例食管淋巴管瘤的报道, 其中仅有3例报道为食管海绵状淋巴管瘤^[1-3], 8例为食管毛细淋巴管瘤, 3例为食管囊状淋巴管瘤, 3例食管蔓状淋巴管瘤, 2例具体分型不详。已经检索到的19例食管淋巴管瘤中其发病平均年龄52岁(最小29岁, 最大75岁), 男女比例约2:1(男性13例, 女性6例), 位于食管下段11例, 上段3例, 中段4例, 1例具体部位不详。肿瘤瘤体约0.4–11.0 cm^[13,14]大小不等。结合文献^[15], 食管海绵状淋巴管瘤内镜下表现亦无特异性, 内镜下表现为食管黏膜大小不一隆起型病变, 其表面黏膜正常或稍充血, 质软。

■ 相关报道

食管海绵状淋巴管瘤极其罕见, 目前国内外少有报道, 明确诊断该病需结合病理活检, 目前对该病的最佳治疗方案, 多数学者认为以内镜下肿瘤瘤体切除术为主要治疗措施。

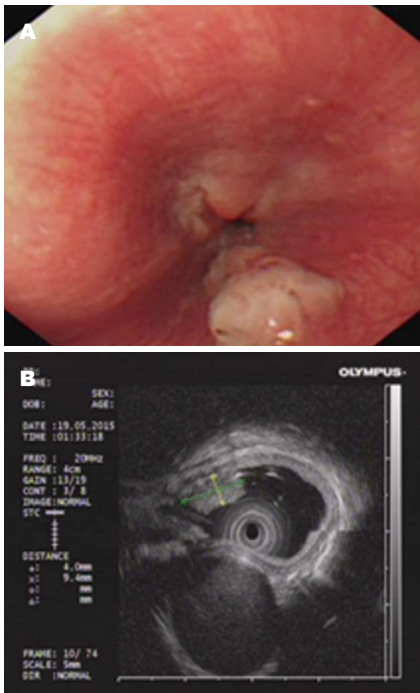


图 1 内镜检查结果. A: 胃镜下见食管下段有条索状黏膜隆起; B: 超声内镜下见大小约0.4 cm×0.9 cm高回声光团, 病变起源于黏膜层。

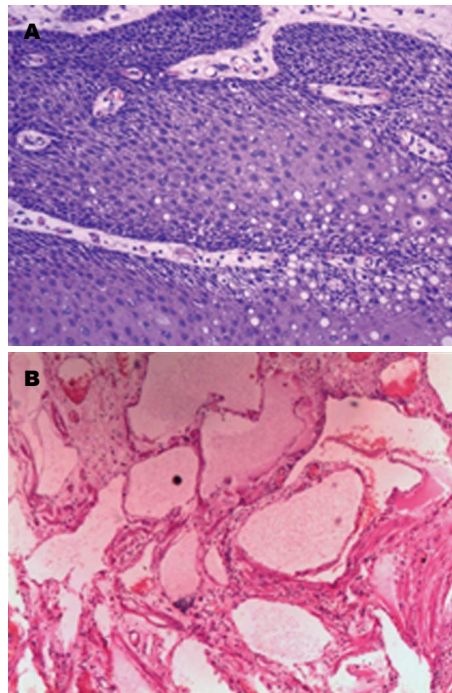


图 2 病理检查结果(H&E×40). A: 大量淋巴细胞增生; B: 扩增的淋巴管, 周围有淋巴细胞集聚, 管腔内含有淋巴液。

创新盘点

本文探讨了国内外对食管海绵状淋巴管瘤的诊断、治疗等方面, 提出了超声内镜下观察病灶的深度及起源的重要性, 以便能更好地与血管瘤鉴别, 减少瘤体活检或切除时大出血及穿孔的发生, 并探讨了对该病的最佳治疗方案。

超声内镜检查可以明确病变深度及起源, 有助于与食管结核、食管癌、食管平滑肌瘤、间质瘤、食管囊肿等相鉴别, 尤其是与黏膜下血管瘤鉴别, 否则盲目活检易发生大出血。因食管海绵状淋巴管瘤多起源于黏膜层, 治疗以内镜下切除术为主^[16,17], 包括高频电凝电切术、EMR、内镜下黏膜剥离术(endoscopic submucosal dissection, ESD)及内镜下黏膜挖除术等治疗, 术中创面小、出血少、术后恢复快、预后良好。

遵义医学院附属医院消化内科报道该例患者主要以上腹部疼痛为主, 诊断考虑为慢性胃炎所致, 且按胃炎治疗后上腹部疼痛好转, 食管海绵状淋巴管瘤诊断属于偶然。该病患者年仅28岁, 比既往报道文献年龄小。本例经常规胃镜及超声内镜明确病变起源于黏膜层, 病理确诊为食管海绵状淋巴管瘤, 予黏膜下注射生理盐水+肾上腺素+亚甲蓝混合液分离黏膜层后, 完整切除瘤体, 术中出血少, 经对症止血治疗后创面很快愈合。

总之, 食管海绵状淋巴管瘤主要是食管淋巴管临床分型的一种, 主要起源于黏膜层, 预后好, 暂无食管海绵状淋巴管瘤恶变的报道, 其临床表现无特异性。故需进一步行胃镜、超

声内镜及消化道钡餐检查等检查其他上消化道疾病相鉴别^[18], 明确诊断需结合病理组织活检。目前对食管海绵状淋巴管瘤的治疗, 多数研究者^[19-21]认为内镜下切除术有安全、经济、创伤小、恢复快等优点, 故作为该病治疗首选, 对于肿瘤瘤体较大、有恶变倾向者可能需行食管切除术或食管胃切除术治疗^[22]。值得注意的是: 肉眼见食管黏膜隆起病变, 不能直接活组织检查或内镜下治疗, 需行超声内镜检查, 进一步明确病变起源部位、性质、大小及与周围组织的浸润程度, 排除黏膜下大血管, 避免发生大出血及穿孔^[23-26]。

3 参考文献

- 曹译心, 张旭, 贺红焰. 食管海绵状淋巴管瘤1例及文献复习. 肿瘤防治研究 2010; 37: 732-733
- 阮海兰, 王莉, 杨维忠, 刘昌江, 谢会忠. 食管海绵状淋巴管瘤一例. 中华临床医师杂志(电子版) 2011; 5: 4306-4306
- 佟牧虹, 冬兰, 周金秋, 李岩, 景宇, 关文萍. 食管海绵状淋巴管瘤1例. 人民军医 2005; 48: 618
- Yoon YH, Kim KH, Baek WK, Kim JT, Son KH, Han JY, Lee JI. Lymphangioma of the esophagus: surgical treatment. *Ann Thorac Surg* 2004; 78: e51-e53 [PMID: 15337085 DOI: 10.1016/j.athoracsur.2004.02.101]
- Hizawa K, Aoyagi K, Kurahara K, Suekane H, Kuwano Y, Nakamura S, Fujishima M. Gastrointestinal lymphangioma: endosonographic demonstration and endoscopic removal. *Gastrointest*

应用要点

对于肉眼所见有食管黏膜隆起的病变, 且不能明确其性质时, 需行病理活检明确, 进一步行超声内镜明确病灶是否起源于黏膜层或黏膜下肌层, 这将为临床医师进一步治疗提供重要依据。

同行评价

本文可提高临床医师对食管海绵状淋巴管的认识, 且阐述了目前国内外对食管海绵状淋巴管瘤的最佳诊断及治疗方案, 值得广大临床医师阅读。

- 6 Teramoto K, Suzumura Y. Mediastinal cavernous lymphangioma in an adult. *Gen Thorac Cardiovasc Surg* 2008; 56: 88-90 [PMID: 18297466 DOI: 10.1007/s11748-007-0198-3]
- 7 林海, 费志勇, 陈兴田, 王瑞武, 田峰, 徐建. 食管巨大淋巴管瘤1例. *胃肠病学* 2013; 18: 447-448
- 8 徐华, 陈易, 汤金海, 吴强, 金颖. 成人胃肠道少见部位淋巴管瘤2例报告. *现代消化及介入诊疗* 2013; 18: 330-332
- 9 Castellanos D, Sebastián JJ, Larrad A, Menchen P, Senent C, Núñez JM, Lopez de la Riva M. Esophageal lymphangioma: case report and review of the literature. *Surgery* 1990; 108: 593-594 [PMID: 2204132]
- 10 陈健, 田茹, 郭瑞峰, 梁化印. 食管淋巴管瘤1例. *诊断病理学杂志* 2010; 17: 248, 256
- 11 Giguère CM, Bauman NM, Smith RJ. New treatment options for lymphangioma in infants and children. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2002; 111: 1066-1075 [PMID: 12498366 DOI: 10.1177/000348940811701105]
- 12 Saers T, Parusel M, Brockmann M, Krakamp B. Lymphangioma of the esophagus. *Gastrointest Endosc* 2005; 62: 181-184 [PMID: 15990849 DOI: 10.1016/S0016-5107(04)02844-5]
- 13 Yildirim E, Dural K, Kaplan T, Sakinci U. Cystic lymphangioma: report of two atypical cases. *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2004; 3: 63-65 [PMID: 17670177]
- 14 仲建全, 漆军, 程广金, 杨超, 陈光祥, 唐光才. 食管囊性淋巴管瘤1例. *中国医学影像技术* 2010; 26: 190-190
- 15 刘鹏霞, 刘枫, 李兆申. 食管淋巴管瘤一例. *中华消化杂志* 2006; 26: 376
- 16 刘晓玲, 张改玲, 王慧超. 食管淋巴管瘤并食管平滑肌瘤1例. *生物医学与临床* 2013; 2: 177
- 17 Sushil A, Aline PC, Metin O, Nadim H. Lymphangioma of the esophagus treated with endoscopic submucosal resection. *J Gastroenterol Hepatol* 2007; 22: 284-286 [PMID: 17295891]
- 18 Lee BI, Kim BW, Kim KM, Song HJ, Cho SH, Choi H, Choi MG, Choi KY, Chung IS, Cha SB, Sun HS, Park DH. Esophageal lymphangiomatosis: a case report. *Gastrointest Endosc* 2002; 56: 589-591 [PMID: 12297787 DOI: 10.1016/S0016-5107(02)70457-4]
- 19 Brady PG, Milligan FD. Lymphangioma of the esophagus--diagnosis by endoscopic biopsy. *Am J Dig Dis* 1973; 18: 423-425 [PMID: 4701042 DOI: 10.1007/BF01071994]
- 20 Binderup MD, Jensen VJ, Busch S. [Lymphangioma of the oesophagus]. *Ugeskr Laeger* 2009; 171: 312-313 [PMID: 19176159]
- 21 Seybt MW, Postma GN. Giant esophageal lymphangioma. *Ear Nose Throat J* 2008; 87: 500 [PMID: 18800319]
- 22 Armengol-Miro JR, Ramentol F, Salord J, Costa MP, Palacin A, Vidal MT. Lymphangioma of the oesophagus. Diagnosis and treatment by endoscopic polypectomy. *Endoscopy* 1979; 11: 185-189 [PMID: 488015 DOI: 10.1055/s-0028-1098349]
- 23 Zhao ZF, Kuang L, Zhang N, Ma SR, Yang Z, Han X, Zhao YF, Gao F, Gong ZJ, Yang L. Endoscopic diagnosis and treatment of esophageal cavernous lymphangioma. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2013; 23: 299-302 [PMID: 23751996 DOI: 10.1097/SLE.0b013e31828b8810]
- 24 曹付亮, 孙思予, 吕庆杰, 刘治军, 王国鑫, 郭瑾陶, 张秋楠, 许娜, 孙世伟. 超声内镜辅助下内镜下黏膜切除对食管黏膜层上皮病变的诊疗价值. *中国内镜杂志* 2009; 15: 785-788
- 25 Xue L, Guo WG, Hou J, Ge D, Chen XJ. Huge lymphangiomatosis of the esophagus. *Ann Thorac Surg* 2012; 93: 2048-2051 [PMID: 22632502 DOI: 10.1016/j.athoracsur.2011.11.021]
- 26 张蓉, 李传行, 高小燕, 罗广裕, 林世永, 李茵, 徐国良. 食管黏膜下肿瘤的超声内镜诊断与内镜下微创治疗. *中国内镜杂志* 2010; 16: 21-24

编辑: 郭鹏 电编: 都珍珍

