.短篇论著.

膀胱炎症性肌纤维母细胞瘤 2 例报道及文献复习

董平 疏仁义 柯磊磊

【摘要】目的 探讨膀胱炎症性肌纤维母细胞瘤(IMT)的临床表现、病理特点、诊治方法和预后。方法 回顾分析 2005 年 8 月和 2011 年 11 月安徽省池州市人民医院泌尿外科收治的 2 例膀胱 IMT 患者临床资料。2 例患者均行膀胱部分切除术。结果 例 1 经上海复旦大学附属医院病理科会诊确诊为膀胱 IMT,术后 3 年因复发再次入院行经尿道膀胱肿瘤电切术,术后病理诊断膀胱 IMT 复发;第二次术后 2 年出现左上肺、骨、皮下多发转移,肺穿刺病理倾向于膀胱肿瘤肺转移可能性大,化疗无效死亡。例 2 行膀胱镜检查时发现膀胱前壁占位直接改行膀胱部分切除,术后病理确诊膀胱 IMT,随访 2 年 6 个月无复发。结论 膀胱 IMT 临床特征与膀胱肿瘤极其相似,确诊主要依靠病理检查,膀胱部分切除是治疗的首选方法。膀胱 IMT 大都倾向于良性病变,出现复发、转移极其罕见。

【关键词】 肿瘤, 肌组织; 肌纤维母细胞瘤; 膀胱肿瘤; 病理学,临床; 外科手术

炎症性肌纤维母细胞瘤(inflammatory myofibroblastic tumor, IMT)常见于肺部,发生于膀胱者少见[1]。因其临床特征与膀胱恶性肿瘤极为相似,临床多误诊为膀胱恶性肿瘤。2005年8月和2011年11月,安徽省池州市人民医院泌尿外科共收治2例膀胱 IMT 患者,检索相关文献均未见类似报道。现对此2例膀胱 IMT 的临床表现、病理特点、诊治和预后结合文献进行总结分析,旨在提高对该病的认识。

1 临床资料

病例1,男,60岁。2005年8月6日因"肉眼血尿伴尿痛 2天"人院。专科检查:双肾区无叩痛,双输尿管径路无压 痛,膀胱区深压不适。膀胱 CT 提示膀胱顶后壁偏右侧肿块, 大小 4.7 cm × 3.9 cm。予膀胱镜检查见: 肿块位于膀胱顶后 壁偏右侧,浸润性生长,基底宽约5 cm 大小,表面出血、坏 死。2次取活组织检查均提示大部分为坏死组织,部分为核 形细胞样结节伴多核细胞浸润。遂行膀胱部分切除术,术中 先分离膀胱顶体部,周围无明显粘连。再切开膀胱,见膀胱 顶后壁偏右侧肌壁间肿块,5 cm 大小,距肿瘤边缘 2 cm 左右 完整切除。术后病理检查显示, Vimetin、CK、H-caldesmon、 SMA 均阳性, desmin、s100、EMA、ALK-1、CD34、CD99 均阴性, 经上海复旦大学附属医院病理科会诊考虑为膀胱 IMT(图 1A)。患者术后于2008年6月27日再次因"无痛性肉眼血 尿 2 天" 入院。膀胱 CT 提示膀胱左侧壁占位。入院后行经 尿道膀胱肿瘤电切术,术后病理考虑为 IMT 复发;但镜下所 见与 2005 年相比肿瘤组织坏死明显,肿瘤细胞异型性明显, 可见病理性核分裂象(图 1B~1D)。该患者术后随访,于 2010年6月出现左上肺部占位,正电子发射计算机体层成像 CT 检查提示:左上肺周围型肺癌并全身多发骨骼及皮下多 发转移。肺穿刺病理(上海中山医院):倾向膀胱间叶源性恶 性肿瘤肺转移可能性大。予患者化疗,无效死亡。

病例 2, 男, 48 岁。2011 年 11 月 6 日因"尿末痛 4 天"人院。专科检查未见明显阳性体征, 膀胱 CT 未见明显异常。考虑临床症状较重, 在腰麻下行膀胱镜检查。术中见膀胱前壁约 3 cm×4 cm 范围内浸润性生长之新生物, 可见部分呈坏死改变, 告知患者家属同意后改行膀胱部分切除术。术后病理报告:膀胱 IMT, CKpan、SMA、ALK 均阴性。术后尿路刺激症状明显缓解, 随访至今无复发或远处转移。

2 讨论

IMT 临床少见,曾被称为炎性假瘤、假肉瘤样纤维黏液性肿瘤、手术后梭形细胞结节等,而炎性假瘤最为常见。IMT病因不明确,可能是人体对损伤的一种异常或过度反应,与感染、创伤、炎症后修复及过敏反应作用下间质细胞过度增生有关。2002 年世界卫生组织软组织肿瘤国际组织学分类专家组正式命名本病为 IMT,定义为由分化的肌纤维母细胞性梭形细胞组成,常伴有大量浆细胞和/或淋巴细胞浸润的一种肿瘤,病因尚不清楚^[2]。IMT 多发生于肺,也可见于其他部位,在泌尿生殖道中如肾脏、前列腺、输尿管、睾丸均有报道,膀胱最常见^[3],多发生于青少年。近年来研究发现,炎性假瘤在少数患者中可有全身性表现,可有多病灶及局部浸润性生长,并具有血管浸润能力及局部复发,甚至会出现恶性变,提示所谓的炎性假瘤可能不是假瘤,而是真正的肿瘤^[4]。

膀胱 IMT 极为少见。1980 年 Roth 等首次报道了膀胱 IMT,认为是炎症后增生或局部变态反应后发生;该病临床表现缺乏特异性,回顾相关文献报道主要表现为血尿和尿路刺激症;以女性多见,约占 64% [5]。肿瘤好发于膀胱底部、顶壁及侧壁 [6],发生于三角区者少见 [7]。B 超及 CT 等检查与膀胱癌没有明显区别,缺乏特异性的影像学表现;膀胱镜下肉眼也很难确诊;因肿块表面多为溃疡、出血、坏死,术前病理明确诊断较为困难 [8]。大部分病变呈结节状、团块状或息肉样肿块,有蒂或广基,部分为壁内结节或肿块,表面有出血、

DOI;10.3760/cma.j. issn. 2095-7041.2015.03.018 作者单位: 247000 安徽省池州市人民医院泌尿外科 通信作者: 董平, Email; ddppffhhyy@163.com

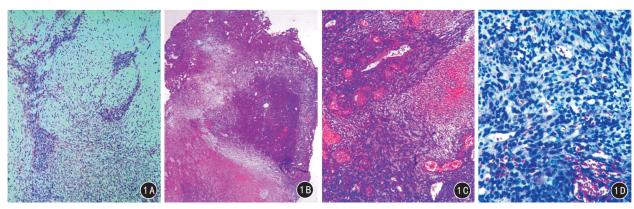


图 1 患者男,60岁,膀胱炎症性肌纤维母细胞瘤 1A 2005年,肿瘤细胞排列希疏,异型性不明显,部分区域黏液变性(HE 染色 × 40) 1B 2008年,肿瘤细胞疏密相间,坏死明显(HE 染色 × 60) 1C 2008年,肿瘤组织坏死明显,瘤细胞围绕血管密集排列(HE 染色 × 100) 1D 2008年,肿瘤细胞异型性明显,可见病理性核分裂象(HE 染色 × 200)

坏死^[9]。少数呈现多个结节,可在同一部位多发,也可以在多个器官、部位同时及先后发现多个病灶^[10]。本组 2 例患者均因血尿、尿痛入院,膀胱 CT 或膀胱镜检查发现肿瘤位于膀胱顶底部及前壁。病例 1 主要表现为壁内肿块,术后解剖见肿块位于膀胱肌层内,呈团块状,局部与浆膜层相连;病例 2 表现为膀胱内浸润性生长,表面出血、坏死,大体标本见肿瘤在肌层内呈浸润性生长,边界不清。与 IMT 影像学上表现肿块样病变或片状侵蚀周围组织相吻合。

膀胱 IMT 术前活检及术中冷冻病理诊断难以明确诊断,提示本疾病术前诊断较为困难[11]。确诊主要依赖于术后病理学检查。其基本病理学特点是梭形肌纤维母细胞伴不同程度慢性炎性细胞浸润。免疫组织化学检测能证实肌纤维母细胞瘤的免疫表型,同时与其他病变鉴别,如膀胱肉瘤样癌、膀胱平滑肌肉瘤以及膀胱横纹肌肉瘤等。

鉴于肌纤维母细胞肉瘤与 IMT 在生物学行为和组织学上存在部分相似之处,有学者建议部分具有局部侵袭性生长特点、细胞密度高、核呈轻到中度异型的 IMT,应归于低度恶性肌纤维母细胞肉瘤,以便与其侵袭性的生物学行为相一致^[12]。这与病例1 在 2008 年出现复发后病理学提示肿瘤细胞围绕血管密集排列、肿瘤细胞异型性明显、可见病理性核分裂象相映证。而病例1于第1次行膀胱部分切除术后2年出现异位复发(顶后壁偏右侧→左侧壁),再次行经尿道电切术并于第5年出现肺部、骨、皮下多发转移,虽检索国内文献未见类似报道,但与以上理论相符合。进一步说明该病具有潜在恶性,术后长期随诊观察尤为重要。

膀胱 IMT 治疗目前尚无标准方法,国内外公认首选治疗应以手术治疗为主,多数行膀胱部分切除,尽量保留膀胱功能,有少数报道相对较小的肿瘤行经尿道切除术后效果亦较好^[13]。术后定期行膀胱灌注化疗存有争议,目前尚无证据能减少复发^[14]。膀胱 IMT 预后良好,大多数情况下是惰性的,良性病程。因此,积极治疗包括根治性膀胱切除、放疗和化疗通常是不必要的^[15]。本组 2 例病例肿瘤主要表现为壁内肿块或在膀胱内浸润性生长,且瘤体相对较大,经尿道手术易出现膀胱穿孔,术中因肿瘤界限不清难以完全切除,导致术后肿瘤残留。因此,笔者建议,对肿瘤较大或术前膀胱镜、CT、MRI 检查主要表现为壁内肿块或在膀胱内浸润性生

长者,手术方式以膀胱部分切除为首选。

参考文献

- [1] 郑闪,毕新刚,王栋,等. 膀胱炎症性肌纤维母细胞性肿瘤病理特征分析[J]. 肿瘤研究与临床,2011,23(6):361-363.
- [2] 王坚,朱雄增. 软组织肿瘤病理学[M]. 北京: 人民卫生出版 社, 2008: 3, 124-126.
- [3] Kim HW, Choi YH, Kang SM, et al. Malignant inflammatory myofifibroblastic tumor of the bladder with rapid progression [J]. Korean J Urol, 2012, 53(9): 657-671.
- [4] 纪小龙,马亚敏. 从炎性假瘤到炎性肌纤维母细胞瘤——浅淡 病理形态学发展的过程[J]. 临床与实验病理学杂志, 2003, 19(3): 319-320.
- [5] Park SB, Cho KS, Kim JK, et al. Inflammatory pseudotumor (myoblastic tumor) of the genitourinary tract [J]. AJR Am J Roentgenol, 2008, 191(4): 1255-1262.
- [6] 张晓阳,王德娟,陈晓东,等. 膀胱假肉瘤性肌纤维母细胞增生一例并文献复习[J]. 中华腔镜泌尿外科杂志: 电子版, 2009, 3(6): 500-503.
- [7] 刘波,刘继红,柯昌庶,等. 膀胱炎性肌纤维母细胞瘤—例报道 并文献复习[J]. 中华泌尿外科杂志, 2007, 28(5): 335-337.
- [8] 俞保柱,李庆文,王成勇,等. 膀胱炎性肌纤维母细胞瘤 4 例报 道及文献复习[J]. 蚌埠医学院学报, 2009, 34(12): 1073-1075.
- [9] 刁磊,魏海霞,田洁,等. 膀胱炎性肌纤维母细胞瘤的临床病理分析[J]. 中国肿瘤临床,2011,38(22);1400-1402,1407.
- [10] Horger M, Pfannenberg C, Bitzer M, et al. Synchronous gastrointestinal and musculoskeletal manifestations of different subtypes of inflammatory myofibroblastic tumor; CT, MRI and pathological features [J]. Eur Radiol, 2005, 15(8): 1713-1716.
- [11] 周成,谢立平,秦杰,等. 膀胱炎性肌纤维母细胞瘤的诊断与治疗[J]. 中华泌尿外科杂志, 2010, 31(4): 276-278.
- [12] 蒙国照. 肌纤维母细胞分化肿瘤[J]. 临床与实验病理学杂志, 2011, 27(4): 410-414.
- [13] 梁彦,董杰,程文. 膀胱炎性肌纤维母细胞瘤 1 例报告及文献 回顾[J]. 医学研究生学报, 2011, 24(10): 1119-1120.
- [14] 李刚,迟玉友,刘少青,等. 泌尿系炎性肌纤维母细胞瘤二例报告并文献复习[J]. 中华泌尿外科杂志, 2008, 29(2): 96-98.
- [15] Cheng L, Foster SR, MacLennan GT, et al. Inflammatory myofibroblastic tumors of the genitourinary tract-single entity or continuum? [J]. J Urol, 2008, 180(4): 1235-1240.

(收稿日期:2014-08-20)

(本文编辑:章新生)