

胃支气管源性囊肿误诊为肾上腺囊肿 1 例报道

刘正理, 郑 飞, 邹久林, 肖芝松, 郑宝寿[△]
(大理大学第一附属医院泌尿外科, 云南 大理 671000)

[摘 要] 胃支气管源性囊肿是一种极为罕见的先天发育异常疾病。2020 年 1 月该院收治 1 例胃支气管源性囊肿, 术前误诊为左侧肾上腺囊肿。对于影像学检查考虑诊断胃后壁、左侧肾上腺区囊实性肿块无法明确其器官来源时, 要注意与胃支气管源性囊肿相鉴别。该例患者治疗以手术为主, 手术首选经腹腔镜手术入路, 术后预后好。

[关键词] 胃支气管源性囊肿; 误诊; 肾上腺囊肿; 鉴别诊断; 治疗; 预后
DOI:10.3969/j.issn.1009-5519.2024.05.020 **中图法分类号:**R699.7
文章编号:1009-5519(2024)05-0814-04 **文献标识码:**A

Gastric bronchogenic cyst misdiagnosed as adrenal cyst :A case report
LIU Zhengli, ZHENG Fei, ZOU Jiulin, XIAO Zhisong, ZHENG Baoshou[△]

(Department of Urology, the First Affiliated Hospital of Dali University, Dali, Yunnan 671000, China)

[Abstract] Gastric bronchogenic cyst is a rare congenital dysplasia disease. In January 2020, one case of gastric bronchogenic cyst was admitted to the hospital, which was misdiagnosed as left adrenal cyst before operation. When the imaging examination considers the diagnosis of cystic solid masses in the posterior wall of the stomach and the left adrenal region, the organ source cannot be determined, and attention should be paid to the identification of gastric bronchogenic cysts. The treatment of this patient was mainly surgery. The first choice of surgery was transperitoneal surgical approach, and the postoperative prognosis was good.

[Key words] Gastric bronchogenic cyst; Misdiagnosis; Adrenal cyst; Differential diagnosis; Treatment; Prognosis

呼吸系统最初起源于原始前肠, 在胚胎第 4 周由原始咽底部向腹侧中胚层伸出原始气管, 并逐渐分支延长, 形成气管-支气管树^[1]。一般认为支气管囊肿起因于异常支气管分支的萌生, 常由气管-支气管树的某一部分向腔外膨出, 其内皮不断分泌黏液逐渐形成含液囊肿, 随着继续发育, 部分可与支气管树相连通^[1]。在分化过程中, 原始气管的组织细胞脱落或游走到其他部位, 亦可在相应部位生成成异位的支气管囊肿^[2]。异位支气管囊肿比较罕见, 支气管囊肿出现在胃壁上生长形成胃支气管源性囊肿, 1956 年首次被报道此罕见病变^[3]。目前, MEDLINE/PubMed 数据库中检索有较少例个案报道。2020 年 1 月本院收治 1 例病例, 术前误诊为左侧肾上腺囊肿, 术后确诊为胃支气管源性囊肿, 现报道如下。

1 资料与方法

1.1 临床资料 患者, 女, 年龄 21 岁, 体重指数 (BMI) 29.7 kg/m²。患者因“反复左侧腰腹部胀痛 2 个月, 院外检查发现左肾上腺占位 1 d”为主诉于 2020 年 1 月入本院就诊, 院外查腹部 CT 平扫提示左肾上腺占

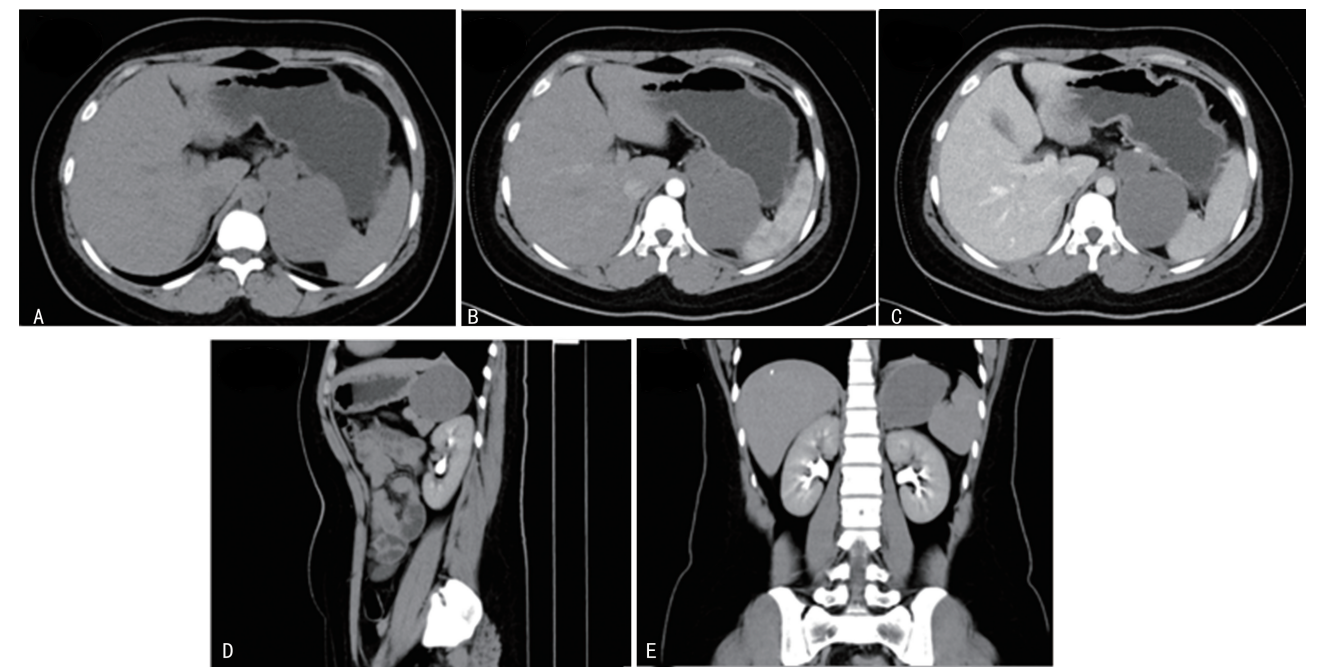
位性质待查。既往史无特殊。月经史无特殊。

1.2 检查及诊断 患者查体未见阳性体征。入院完善实验室检查血常规、肝肾功能、电解质、尿常规、血淀粉酶、脂肪酶、免疫球蛋白、肿瘤标记物水平均正常; 肾上腺类激素检查结果正常。辅助检查: 腹部彩色多普勒超声示左侧肾上腺区探及一大一小约 6.3 cm×5.2 cm 的低回声包块, 边界清, 彩色多普勒血流图(CDFI)未见异常血流信号, 考虑左肾上腺占位性质待查。腹部 CT 尿路成像(CTU)示左侧肾上腺外支不规则增粗呈团块状等密度影, 增强扫描未见明显强化, 病灶边缘尚清, 最大层面大小约 8.1 cm×6.4 cm, 临近脾脏及胃壁受压表现, 考虑左侧肾上腺腺瘤/囊肿可能(图 1)。肾上腺核磁共振成像(MRI)平扫+增强示: 左肾上腺区见较大团块状异常信号影, T1WI、T2WI 低信号, 增强无强化, 考虑左肾上腺区占位良性可能(图 2)。术前诊断: 腹膜后肿物性质待查(左侧肾上腺囊性占位可能性大)。

1.3 手术 2020 年 1 月行经腹腔镜下左肾上腺囊性占位切除术, 术中见囊肿大小约 7.5 cm×5.5 cm×

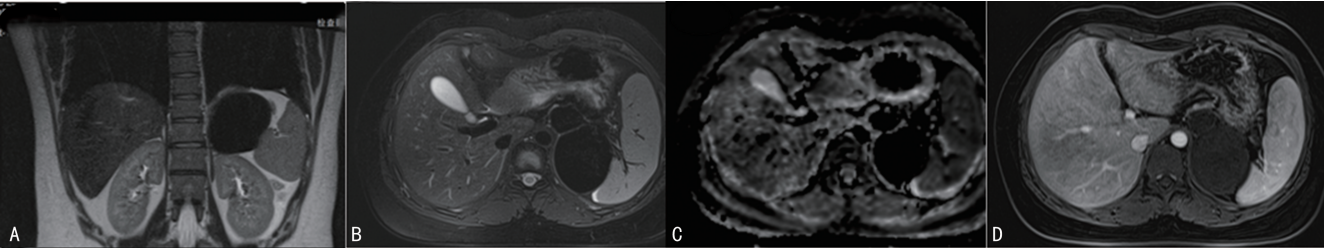
2.0 cm, 囊肿与胃后壁胃大弯胃体部分界不清, 壁薄, 边缘光滑, 突出胃壁, 与后腹膜和周围器官边界清晰, 充分游离囊肿组织, 发现其与胃后壁胃大弯胃体处移行且边界不清, 考虑肿物来源于胃后壁胃大弯胃体部。术中与患者家属沟通病情, 改行“腹腔镜下胃部分切除术+胃大弯囊性占位切除术”, 切除肿物及部

分胃壁组织, 术后剖开囊肿见咖啡色样黏稠液体充满囊腔, 囊腔与胃内不相通, 术后胃囊性占位病理检查示: 送检囊壁样组织表面衬覆纤毛柱状上皮, 其下为较厚的平滑肌组织, 局部见胃体腺。综上所述, 符合支气管源性囊肿(图 3)。术区留置负压球, 于术后 48 h 拔除。



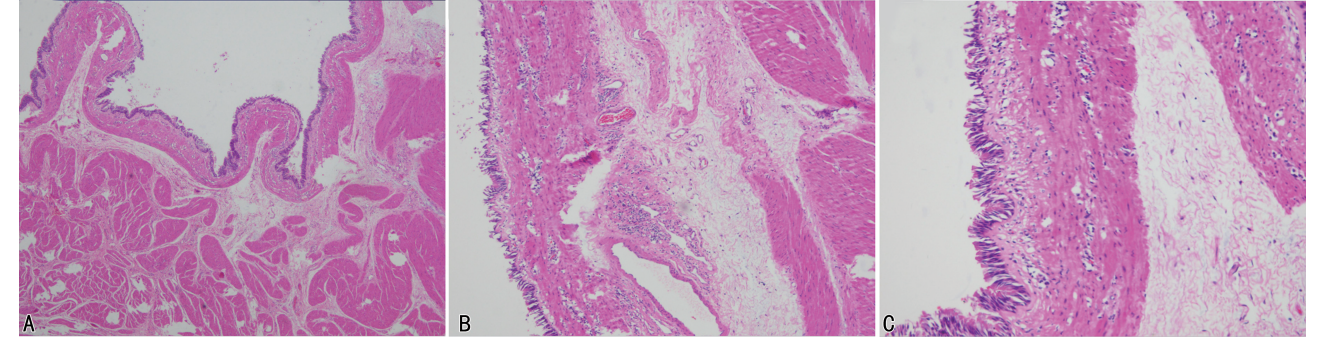
注: A. 腹部 CT 平扫横断面, CT 平均值为 40.4 HU; B. 腹部 CT 增强扫描横断面动脉期, CT 平均值为 40.5 HU; C. 腹部 CT 增强扫描横断面门脉期, CT 平均值为 41.1 HU; D. 腹部 CT 增强扫描矢状面, CT 平均值为 41.6 HU; E. 腹部 CT 增强扫描冠状面, CT 平均值为 40.1 HU。

图 1 腹部 CTU



注: A. 冠状位, T2WI 序列; B. 横轴面, T2WI 压脂序列; C. 横轴面, DWI 序列; D. 横轴面, MRI 增强 T1WI 压脂序列。

图 2 肾上腺 MRI 平扫+增强

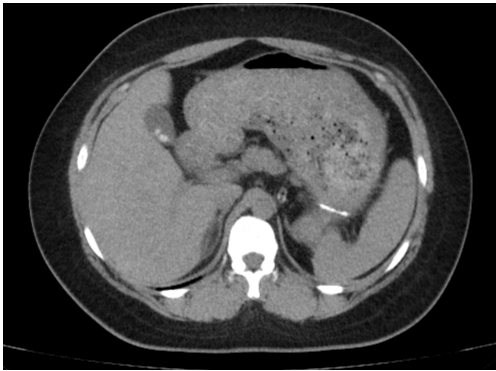


注: 送检囊壁样组织表面衬覆纤毛柱状上皮, 其下为较厚的平滑肌组织, 局部见胃体腺。A. 苏木精-伊红(HE)染色(4×10); B. HE 染色(10×10); C. HE 染色(20×10)。

图 3 术后病理检查结果

2 结 果

患者术后恢复顺利,无并发症发生,5 d 后出院。术后 18 个月随访腹部 CT 示左肾上腺、肾脏和胰腺无明显异常结构(图 4)。



注:左肾上腺、肾脏和胰腺无明显异常结构。

图 4 术后 18 个月随访腹部 CT

3 讨 论

胃支气管源性囊肿患者发病年龄 25~81 岁,女性发病率约为男性的 2 倍,通常发生在胃底或贲门部^[4-5],本例占位肿物位于胃后壁胃大弯胃体处,影像学示占位肿物组织与肾上腺关系密切。异位支气管囊肿发病原因尚未完全明确,目前多认为其形成与胚胎第 3~6 周原始前肠的气管支气管树胚芽形成异常并脱落、移位种植具有关联性,可发生于任何年龄阶段。异位支气管囊肿疾病早期通常无症状,部分患者可随囊肿增大产生的压迫作用而出现腹痛、恶心、呕吐、体重减轻、上腹部肿块等非特异性临床症状^[6]。胃支气管源性囊肿通常缺乏特异性实验室结果及影像学表现,常于体检或其他原因就诊影像学检查发现。通过患者病史、体征、实验室甚至影像学检查可能很难确诊为胃支气管源性囊肿,临床该病误诊率高达 40%~60%^[7]。近年来,有研究发现肿瘤标记物糖链抗原(CA-125)、CA72-4、CA19-9 水平升高与胃支气管源性囊肿之间可能存在相关性^[8-11]。胃支气管源性囊肿可因囊肿内容物成分差异从而出现超声、CT 影像学表现差异^[9,12]。腹部 CT 平扫中显示低密度影像,大约一半胃支气管源性囊肿在 CT 上显示水密度值小于 20 HU,CT 值多在 8~22 HU,CT 对比增强扫描中动脉期、静脉期常无明显强化^[9,13]。MRI 检查在 T1 加权 MRI 上常表现为低信号,T2 加权 MRI 上常表现为高信号,囊肿内信号均匀,增强扫描无强化,部分可因囊内成分密度高表现为 T1 和 T2 加权 MRI 上均明显强化^[14]。本例患者 T2WI 表现为低信号,可能与囊内蛋白浓度较高相关。组织病理学是确诊胃支气管源性囊肿的唯一检查方法,术前仅凭借影像学检查很难做出明确诊断,易造成临床误诊。

通常腹膜后器官的囊性肿物区分为以下几种病

变,(1)胰腺相关囊性疾病:胰腺假性囊肿、黏液性胰腺瘤、浆液性胰腺瘤和囊性假乳头状瘤;(2)肾上腺相关囊性疾病:肾上腺囊肿、铬细胞瘤、节细胞神经瘤、神经鞘瘤;(3)肾脏相关囊性疾病:囊肿、囊性肾癌、混合性上皮间质肿瘤、血管淋巴瘤、肾盂憩室等;(4)附件区相关囊性疾病:黏液性囊腺瘤、浆液性囊腺瘤、腹膜后假黏液瘤。胃支气管源性囊肿影像定性诊断困难,需与其他囊性病变相鉴别,如胃来源的胃间质瘤囊变、后腹膜神经源性肿瘤、胃重复囊肿等疾病。因本例患者术前被误诊为左侧肾上腺囊肿,故本文重点讨论其与肾上腺囊肿的鉴别诊断。肾上腺囊肿于 1670 年由 GREASLESS 教授首次报道,且肾上腺囊肿较少见。有文献^[15]报道,一组 1 400 例尸检中仅见 1 例(0.07%)肾上腺囊肿,男、女比例为 1:2。病变通常为单侧发病,偶见双侧发病,依据病因分为 4 种类型:内皮性、出血性、上皮性、寄生虫性,其中以内皮性囊肿最为常见。多数肾上腺囊肿常无典型临床症状,但较大囊肿可产生腹部包块或由于压迫肾动脉而发生高血压。实验室、肾上腺功能检查多无异常,但作者认为常规肾上腺内分泌检查虽然对诊断过程帮助不大,但对鉴别肾上腺功能性肿瘤疾病意义较大。肾上腺 CT 检查可提供良好的空间分辨率,是诊断肾上腺囊肿的首选方法,常表现为边界清楚的类圆形或卵圆形肿块,囊壁薄而光滑,部分囊壁可见钙化灶,内容物呈均匀水样低密度影像,CT 值接近于水(5~20 HU)。当肾上腺囊肿合并有出血时密度可较高,增强扫描无强化,囊壁和分隔可见强化^[16]。肾上腺囊肿 MRI 检查呈典型囊性肾上腺肿块表现,即 T1WI 为均匀低信号,T2WI 为高信号,增强 MRI 检查囊肿无强化。当囊肿内合并出血可导致其信号特征随出血时间产出现差异,囊内陈旧性出血在 T1WI、T2WI 上可为均匀低信号。肾上腺囊肿可因继发囊肿内出血、感染失去均一特征,此时 MRI 则更具有诊断鉴别意义^[16]。作者分析本例患者出现误诊原因可能为:(1)胃支气管源性囊肿发病率低,导致作者对该病认识不足,相关的诊治经验欠缺;(2)本例患者囊性占位组织较大且毗邻并压迫胃后壁胃大弯胃体部及左肾上腺,影像学难以确定其器官来源,并且本例患者术前 MRI 及 CT 检查均未能明确其器官来源。

由于目前世界范围内对于胃气管源性囊肿治疗尚存在争议,有学者认为支气管源性囊肿存在增大及潜在恶变可能,建议手术切除^[17]。作者认为胃气管源性囊肿的治疗选择应基于囊肿病变的大小、位置和数量,以及患者的身体状况决定,较小且无症状病例可加强随访;对于囊肿进行性增大、引起临床症状或者不能排除恶性疾病,首选手术切除,如选择保守治疗,建议密切随访。手术应注意对囊壁的完整切除以避

免因术中囊肿壁组织残留所导致的囊肿复发。

综上所述,本文报道了 1 例起源于胃后壁胃大弯胃体部的胃支气管囊肿被误诊为左侧肾上腺囊肿的病例。在临床工作中,胃后壁、左侧肾上腺囊实性肿块通常难以区分,对于影像学位于胃后壁、左侧肾上腺的囊实性肿块,若术前无法明确其器官来源,则应注意与胃支气管源性囊肿相鉴别。术后病理诊断为该疾病临床确诊“金标准”,手术将囊肿完整切除为其最佳治疗方式,建议首选经腹腔镜手术入路切除。

参考文献

[1] 张浩民,王峰,李元春,等. 经腹腔镜治疗腹膜后支气管源性囊肿[J/CD]. 中华腔镜外科杂志(电子版),2015,8(4):285-286.

[2] 李文起. 气管支气管囊肿[J]. 中华外科杂志,1986,24(6):378-378.

[3] 郭战军,李刚,张烨,等. 腹膜后支气管源性囊肿二例报告并文献复习[J]. 中华泌尿外科杂志,2012,33(8):608-610.

[4] 丛振杰,殷庆凤,董成功,等. 胃支气管源性囊肿 1 例[J]. 中华解剖与临床杂志,2017,22(2):175-176.

[5] TU C Y,ZHU J D,SHAO C X,et al. Gastric bronchogenic cysts:A case report and literature review[J]. Exp Ther Med,2016,11(4):1265-1270.

[6] YANG X, GUO K J. Bronchogenic cyst of stomach:Two cases report and review of the English literature[J]. Wien Klin Wochenschr,2013,125(9/10):283-287.

[7] XIAO J C,ZHANG R P,CHEN W Q,et al. Ectopic bronchogenic cyst of the gastric cardia considered to be a gastrointestinal stromal tumor before surgery:A case report[J]. BMC Surg,2020,20(1):42.

[8] TAN K K,NANDINI C L,HO C K. A case of gastric bronchogenic cyst in Singapore with multiple intrigues[J]. ANZ J Surg,2010,80(4):286-287.

[9] CHENG Y J,CHEN D L,SHI L,et al. Surgical

treatment of an esophageal bronchogenic cyst with massive upper digestive tract hematoma without esophagectomy:A case report and the review of the literature[J]. Ther Clin Risk Manag,2018,14:699-707.

[10] CHEN J Y,LIU Q W,LING Y H,et al. Extraordinarily elevated serum CA19-9 in a patient with posterior mediastinum cyst:A case report[J]. Clin Chem Lab Med,2017,55(12):e279-e281.

[11] HE W T,DENG J Y,LIANG H,et al. Bronchogenic cyst of the stomach:A case report[J]. World J Clin Cases,2020,8(8):1525-1531.

[12] FAZEL A,MOEZARDALAN K,VARADARAJULU S,et al. The utility and the safety of EUS-guided FNA in the evaluation of duplication cysts[J]. Gastrointest Endosc,2005,62(4):575-580.

[13] MURAKAMI R,MACHIDA M,KOBAYASHI Y,et al. Retroperitoneal bronchogenic cyst:CT and Mr imaging[J]. Abdom Imaging,2000,25(4):444-447.

[14] CHUNG J M,JUNG M J,LEE W,et al. Retroperitoneal bronchogenic cyst presenting as adrenal tumor in adult successfully treated with retroperitoneal laparoscopic surgery[J]. Urology,2009,73(2):442. e13-442. e15.

[15] PRADEEP P V,MISHRA A K,AGGARWAL V,et al. Adrenal cysts:An institutional experience[J]. World J Surg,2006,30(10):1817-1820.

[16] WANG F Q,LIU J W,ZHANG R X,et al. CT and MRI of adrenal gland pathologies[J]. Quant Imaging Med Surg,2018,8(8):853-875.

[17] SUN B,WANG A K,CHEN H,et al. Bronchogenic cyst of the stomach:A case report and literature review[J]. Exp Ther Med,2020,20(6):166.

(收稿日期:2023-07-17 修回日期:2023-12-04)