

DOI:10.16781/j.0258-879x.2017.01.0128

成人胸壁及腋下巨大囊性淋巴管瘤的手术治疗

李诗兰¹, 姚志伟¹, 聂明明², 金海³, 郑唯强⁴, 胡薇^{1*}

1. 第二军医大学长海医院甲乳外科, 上海 200433
2. 第二军医大学长海医院胃肠外科, 上海 200433
3. 第二军医大学长海医院胸外科, 上海 200433
4. 第二军医大学长海医院病理科, 上海 200433

[关键词] 囊状淋巴管瘤; 成年人; 腋; S型切口; 手术切除

[中图分类号] R 733 [文献标志码] B [文章编号] 0258-879X(2017)01-0128-03

Surgical treatment of giant cystic lymphangioma in chest wall and axilla in adults

LI Shi-lan¹, YAO Zhi-wei¹, NIE Ming-ming², JIN Hai³, ZHENG Wei-qiang⁴, HU Wei^{1*}

1. Department of Thyroid and Breast Surgery, Changhai Hospital, Second Military Medical University, Shanghai 200433, China
2. Department of Gastrointestinal Surgery, Changhai Hospital, Second Military Medical University, Shanghai 200433, China
3. Department of Thoracic Surgery, Changhai Hospital, Second Military Medical University, Shanghai 200433, China
4. Department of Pathology, Changhai Hospital, Second Military Medical University, Shanghai 200433, China

[Key words] cystic lymphangioma; adult; axilla; S-shaped incision; surgical resection

[Acad J Sec Mil Med Univ, 2017, 38(1): 128-130]

囊性淋巴管瘤是一种先天性良性错构瘤,是在胚胎发育过程中由于原始淋巴囊与淋巴系统隔绝后发生的肿瘤样畸形。孤立的胸壁囊性淋巴管瘤是一种罕见的疾病,大多数时候囊性淋巴管瘤出现在颈部^[1]。囊性淋巴管瘤的病例男性对女性的比例为1:3^[2]。过大囊性淋巴管瘤既影响外观,也妨碍局部功能。手术是直接的治疗方式,但复发率和并发症仍是需要关注的要点。我们设计了腋下横“S”梭形切口结合腋尖近心端淋巴管结扎手术,取得较好的效果,现报告如下。

1 临床资料

1.1 一般资料 近8年本院收治3例成人腋下巨大囊性淋巴管瘤患者。

病例1:女性患者,40岁,无明显诱因发现左腋下肿物6个月,进行性增大3个月,于2008年3月28日入院。查体:左腋下明显隆起,表皮无破溃,周围皮肤无红肿,可触及约7 cm×4 cm的质软肿物,左上肢无运动及感觉异常。超声检查:左腋窝皮下无回声区,范围约6.1 cm×3.4 cm×4.2 cm,边界清,包膜完整,内伴条带状分隔,其内未见血流信号。MRI检查:左腋下

2枚圆形低密度影,增强后未见明显强化,深部近胸膜。诊断:左腋窝皮下囊肿。

病例2:女性患者,30岁,妊娠后出现左腋下肿物2年,进行性增大,于2012年9月12日入院。查体:左腋下明显突起,可触及约10 cm×8 cm大小质软肿物,与皮肤无粘连(图1A),无触痛。左上肢下垂时略有不适。超声检查:左腋窝皮下见一多分隔的无回声区。MRI检查:左腋窝液性占位范围约15 cm×10 cm×8 cm,部分边界清,内可见条带状分隔,其内未见血流信号(图1D、1E)。诊断:左腋窝淋巴管瘤^[3]。

病例3:女性患者,30岁,无明显诱因发现左侧胸壁肿块4个月,肿物呈进行性增大,于2014年4月11日入院。查体:左腋下及左乳上方可见明显隆起,质软,大小约15 cm×10 cm(图2A),轻触痛,表皮无红肿发热,有波动感。胸部CT检查:左侧胸壁、腋窝皮下及肌间隙较大囊性占位(图2B)。MRI检查:左侧胸壁、腋窝皮下及肌间隙内囊性占位,病灶累及范围约20.3 cm×16.6 cm×6.1 cm,其内可见低信号纤维分隔,增强后纤维分隔轻度强化,囊性成分无强化(图2D、2E)。诊断:左胸壁淋巴管瘤。

[收稿日期] 2016-07-18 [接受日期] 2016-12-15

[基金项目] 军队“十二五”重点项目(BWS11C034)。Supported by Key Project of “12th Five-Year Plan” of PLA (BWS11C034)。

[作者简介] 李诗兰,第二军医大学临床医学系2011级本科学员,现在首都儿科研究所附属儿童医院心脏外科工作。E-mail: 874902737@qq.com

*通信作者 (Corresponding author)。Tel: 021-31161645, E-mail: huweicj@163.com

1.2 手术方法和结果 经患者知情同意后全麻下行左腋下、胸壁肿物切除术,以腋窝为手术入路。横“S”形梭形切口设计(图 1A);腋皱襞下 2 cm 行横“S”形梭形切口,切除多余皮肤,沿多囊性成分外缘分离,切除病灶,于锁骨下腋尖部结扎淋巴管近心端,最后重建腋窝凹陷。切除标本肉眼为多房性囊性肿瘤,囊壁薄呈透

明状、质软,囊内有大量淡黄色清亮液体(图 3A),3 例患者病理诊断均为囊性淋巴管瘤(图 3B~3D)。患者均未输血,手术时间约 1.5 h,术后外形均良好,无畸形,无明显瘢痕(图 1B、1C),术后上肢感觉无异常。查体结合 MRI(图 1F、1G)或 CT(图 2C)进行随访,病例 1、2、3 分别随访为 8、4、2 年,无局部复发。

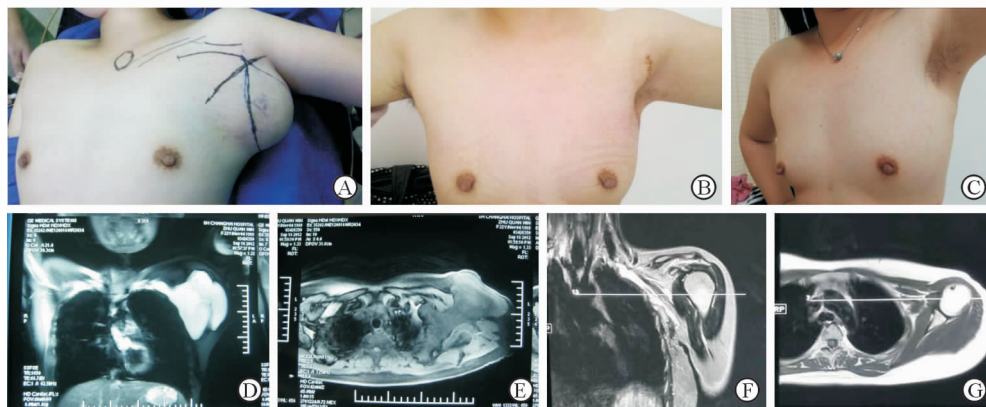


图 1 病例 2 的术前、术后外观和影像学表现

A: 术前外观,“S”形的梭形切口设计,同时标记了锁骨和腋窝血管和胸大肌外缘; B: 术后 1 个月外观; C: 术后 3 年外观; D, E: 术前病灶 MRI T₂ 加权均匀高信号(D)、T₁ 加权低信号(E),确定内容物为液性; F, G: 术后 2 年 T₂ 加权腋下原高信号无复发(F)、T₁ 加权无明显占位低信号

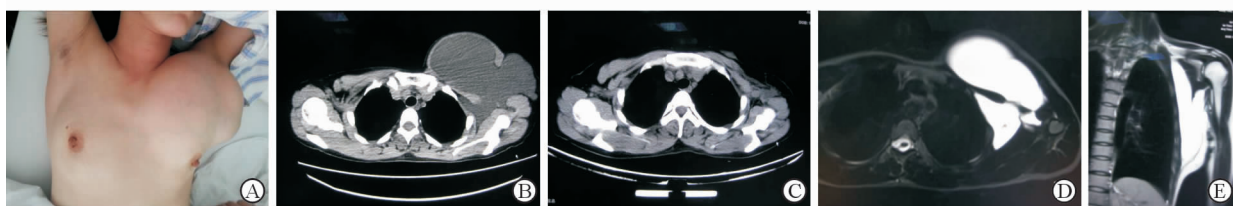


图 2 病例 3 的术前外观、术前和术后 CT、术前 MRI

A: 术前正面外观; B: 术前 CT 扫描显示病灶呈多房性囊样结构,位于胸大肌上下; C: 术后 CT 随访无复发; D, E: 术前横截面(D)和冠状位(E)MRI,病灶 T₂ 加权均匀高信号,多房性病灶充满了液体,从背阔肌前方延伸到腋窝顶

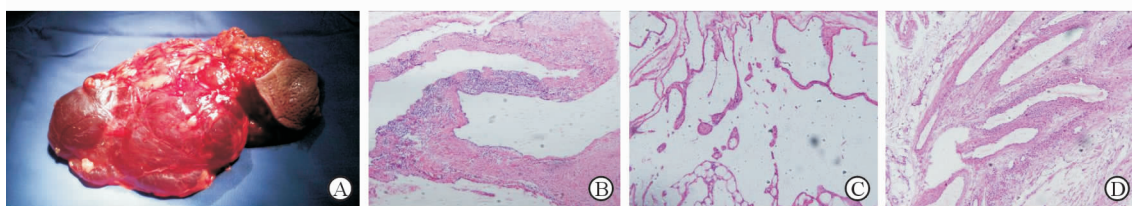


图 3 大体标本及病理图像

A: 病例 2 的大体标本,大小为 15 cm×10 cm×4 cm,呈薄壁、透明的多囊改变,充满淡黄色透明液体; B~D: 病例 1(B)、病例 2(C)、病例 3(D)的病理诊断结果均为囊性淋巴管瘤,由增生的纤维平滑肌组织、血管及神经组织构成。H-E 染色,Original magnification: ×100 (B~D)

2 讨论

淋巴管瘤是一种良性肿瘤,具有长期缓慢增长的特性,在病毒感染或创伤等引起淋巴管发生阻塞或出血时,瘤体可迅速长大,并且产生压迫症状^[1]。淋巴管瘤组织学上主要分为 3 型:(1)单纯淋巴管瘤,也称毛细管型,由密集的薄壁淋巴管构成,其内含有淋巴液,常有淋巴细胞浸润,此型较罕见,多见于皮肤及黏膜处;(2)海绵状型,由较大淋巴管构成,多见于上肢及腋部的皮肤、肌肉和结缔组织内,可向周围组织蔓延;(3)囊性淋巴管瘤,又称囊性水瘤,最多见,由大的淋巴管

腔隙构成,其内含有胶原组织和平滑肌,好发于面颈部,其余见于腋窝、纵隔、后腹膜和盆腔等多个区域。本组 3 例患者均属于第 3 型。

2.1 囊性淋巴管瘤的临床表现及诊断 囊性淋巴管瘤多见于婴幼儿,大约 2 000~4 000 名新生儿中并发 1 例,且多在 2 岁前确诊,男女发生率相仿。成人囊性淋巴管瘤少见。囊性淋巴管瘤最常发生于面颈部(75%),少见干腋窝(2%),常因组织结构间隙而塑形^[2]。现认为囊性淋巴管瘤在成人期的发展与创伤、感染、肿瘤生长或者医源性刺激等因素有关^[4]。本组 3 例患者起病时均为成人,病例 1、3 没有明确诱因,

病例2与妊娠关系密切。

囊性淋巴管瘤早期一般无明显症状,或仅表现为局部包块,肿块常柔软具有波动性,渐进性增大,当合并出血或感染时,肿块可迅速增大。患者多因突然增大的肿块而就诊。此时患者可表现为肿块局部外表畸形或产生压迫症状。早期诊断主要依赖于影像学改变,MRI、CT及超声是常用的检查手段。囊性淋巴管瘤在MRI上主要表现为多房性,分房大,分隔细、薄,增强后囊壁和分隔轻度强化或无强化,并发感染时可明显强化;并发出血时可见“液-液平面”征;沿疏松组织间隙生长,呈“分叶状”。MRI具有优越的软组织分辨率,可以清晰显示淋巴管瘤内的多种成分和周围软组织的受累情况。此外,MRI具有多方位成像和多种参数成像的优点,尤其MRI将脂肪抑制后能较清楚地显示迂曲扩张的淋巴管^[5]。超声检查虽有类似特征性表现,但探查范围局限,可在超声引导下行细针穿刺活检,抽出淡黄色囊液,有助于诊断。CT的优势也在于指导穿刺引流和硬化剂治疗。本组3个病例术前均做了患侧肩部增强MRI或CT检查,有助于了解病变范围以及与腋血管的关系,便于制定手术方案。

囊性淋巴管瘤主要依靠影像学改变与血管瘤、良性淋巴管内皮瘤、部分淋巴瘤以及各部位的其他囊性病变相鉴别。囊性淋巴管瘤在MRI上虽可见血管包绕征,但增强扫描强化程度较血管瘤或静脉畸形轻,其内有分隔特征。确诊大多需要手术及病理证实。

2.2 囊性淋巴管瘤的治疗 目前囊性淋巴管瘤首选治疗方式是手术切除。临床上只有小部分淋巴管瘤可自行退化。淋巴管瘤因其缓慢、浸润和渐进增长的特点,完全切除者仅占18%~50%^[6],即使完全切除,术后仍有0~27%的复发率^[7-9]。其他治疗包括博来霉素或平阳霉素等药物治疗、放疗、硬化剂注射及冷凝治疗等。

因淋巴管瘤可沿组织间隙蔓延生长,因此,术前精确定位、明确病变范围对于确定治疗方案非常重要。MRI检查通过矢、冠、轴三平面结合扫描,加之软组织分辨率高,利于显示病变范围及周围结构受累情况,可为手术切除范围提供参考。

该3个病例手术的重点均在腋窝的解剖:(1)腋窝部手术要注意保护腋血管鞘、臂丛神经等,没有并发感染的病灶,虽然向各组织间隙延伸,但手术分离尚界限清楚,虽然壁薄而软分离易破裂,但彻底切除的概率较大。本组3例患者病灶的边界,外侧缘位于背阔肌前沿,内侧为胸壁,上达锁骨下,前方部分为胸大肌和胸小肌,部分为腋窝处皮肤,下达背阔肌与胸壁交界处。(2)病变均沿淋巴干及淋巴管走行区分布,明确腋窝部位淋巴管的起源和走向,有行腋窝淋巴结清扫术的技术基础,于锁骨下腋尖部结扎淋巴管近心端,对预防腋

窝部位术后淋巴漏或减少复发有极大帮助。(3)因病灶范围大,腋下皮肤长期受扩张冗余,腋皱襞下2cm行横“S”梭形切口,切除适量多余皮肤,切口隐蔽,又有助于术后恢复腋窝凹陷。本组3例患者术后随访8、4、2年均无复发,目前仍在随访中。

总之,成人胸壁及腋下囊状淋巴管瘤是一种罕见的疾病,诱因不明,妊娠是诱因之一。腋下横“S”梭形切口手术具有切口隐蔽、术野暴露好、利于臂丛神经的保护、肿瘤完整切除等优点,腋尖近心端淋巴管结扎有利于减少复发率。肩部MRI利于显示病变范围及周围结构受累情况,有助于制定手术方案。

[参考文献]

- [1] HA J, YU Y C, LANNIGAN F. A review of the management of lymphangiomas[J]. *Curr Pediatr Rev*, 2014, 10: 238-248.
- [2] SOKOUTI M, ROSTAMBEIGI N, HALIMI M, RASHASHEMI S Z. A huge lymphangioma mimicking pleural effusion with extension to both chest cavities: a case report and review of literature[J]. *Iran J Med Sci*, 2015, 40: 181-184.
- [3] 职康康, 聂明明, 韩廷, 徐光寰, 毕建威. 成人左腋下巨大囊性淋巴管瘤一例[J]. *中华普通外科杂志*, 2009, 24: 751.
- [4] MCCAFFREY F, TADDEO J. Surgical management of adult-onset cystic hygroma in the axilla[J]. *Int J Surg Case Rep*, 2015, 7C: 29-31.
- [5] KAHANA A, BOHNSACK B L, CHO R I, MAHER C O. Subtotal excision with adjunctive sclerosing therapy for the treatment of severe symptomatic orbital lymphangiomas [J]. *Arch Ophthalmol*, 2011, 129: 1073-1076.
- [6] ACEVEDO J L, SHAH R K, BRIETZKE S E. Nonsurgical therapies for lymphangiomas; a systematic review[J]. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2008, 138: 418-424.
- [7] JOLIAT G R, MELLOUL E, DJAFARRIAN R, SCHMIDT S, FONTANELLA S, YAN P, et al. Cystic lymphangioma of the adrenal gland: report of a case and review of the literature [J/OL]. *World J Surg Oncol*, 2015, 13: 58. doi: 10.1186/s12957-015-0490-0.
- [8] YOKOIGAWA N, OKUNO M, KWON A H. Cystic lymphangioma of the chest wall; a case report [J]. *Case Rep Gastroenterol*, 2014, 8: 393-397.
- [9] LU D, WANG Y, ZENG W, PENG B. Giant fetal lymphangioma at chest wall and prognosis: case report and literature review [J]. *Taiwan J Obstet Gynecol*, 2015, 54: 62-65.

[本文编辑] 孙岩