

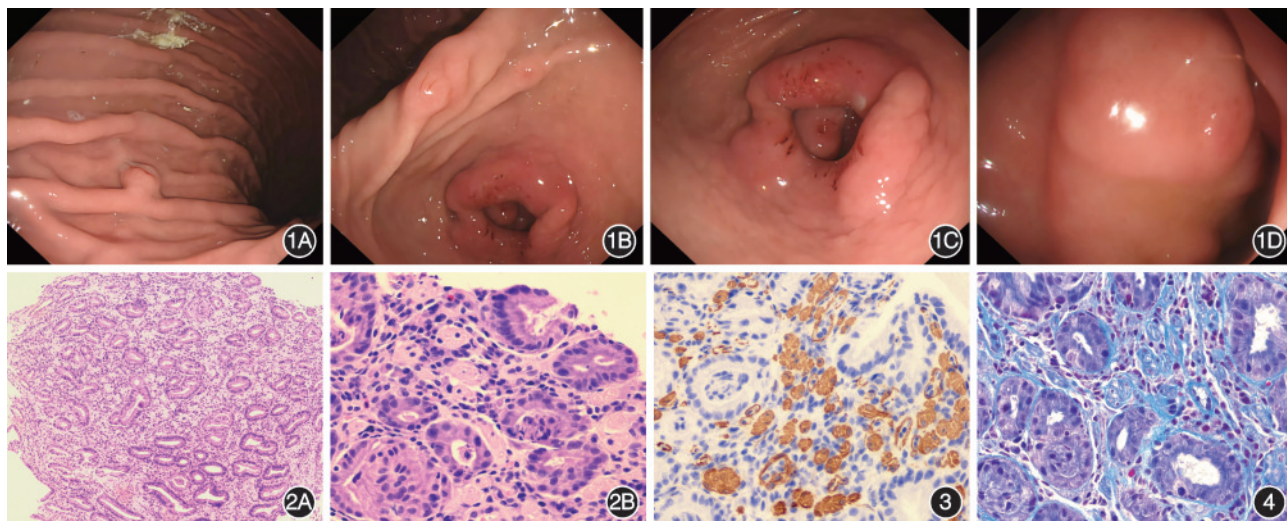


图1 胃镜下特征 1A:胃体部白齿状膨大隆起;1B:胃角处白齿状膨大隆起;1C:胃窦部环周隆起型占位,假幽门形成;1D:十二指肠球部变形 图2 胃窦部活检病理 2A:黏膜腺体间隙增宽 HE $\times 100$;2B:黏膜间质内可见大量嗜伊红物质呈环状结构,部分中央可见核,部分无核 HE $\times 400$ 图3 免疫组织化学染色,嗜伊红物质SMA呈阳性表达 IHC $\times 400$ 图4 特殊染色,嗜伊红物质环状物着色呈蓝色 Masson $\times 400$

为黏膜面光滑,肿物位于黏膜下,使黏膜表面呈隆起型改变,这也是临床造成误诊的原因。但病理检测形态结合免疫组织化学可以做出正确判断,印戒细胞癌一般表达CK,而不表达vimentin和SMA,而神经内分泌肿瘤常表达Syn和CgA。(3)Russell小体胃炎,是由胃黏膜内浆细胞积聚引起^[2],病理学特征表现为在黏膜固有层内可见免疫球蛋白所形成的嗜酸性物质,称为“Russell小体”,免疫组化提示表达CD138和CD38,但CK和SMA为阴性。(4)寄生虫感染,文献报道,在胃部也可存在静止状态的阿米巴原虫,此例空泡状结构中可见蓝色深染的核,易让人联系到是吞噬了淋巴细胞,但特殊染色AB-PAS不支持此疾病,且患者无疫区接触史。

胃窦部假幽门形成的治疗,一般遵循以下原则:若症状较轻,可以进行对症治疗,进行球囊扩张或手术治疗;若是梗阻症状重,具备手术指征的,可采取手术切除,预后较

良好^[3]。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突

参 考 文 献

- [1] Wu SF, Lin HY, Huang FK, et al. Efficacy of medical treatment for infantile hypertrophic pyloric stenosis: a meta-analysis[J]. *Pediatr Neonatol*, 2016,57(6):515-521. DOI: 10.1016/j.pedneo.2016.02.005.
- [2] Qiao J, Dudrey E, Gilani S. Russell body gastritis[J]. *Pathologica*, 2019, 111(2): 76-78. DOI: 10.32074/1591-951X-17-19.
- [3] 王小凤. 28例假幽门临床分析[J]. *中华消化内镜杂志*, 2001, 18(3): 178-179. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1007-5232.2001.03.027.

单形性嗜上皮肠道T细胞淋巴瘤同时合并直肠癌1例

张炼^{1,2} 郑小龙¹ 张雪群³ 谢万灼¹

¹浙江大学医学院附属第一医院血液科,杭州 310003;²衢州市中医医院血液肿瘤科,衢州 324002;³浙江大学医学院附属第一医院消化内科,杭州 310003

通信作者:谢万灼,Email:xiewanzhuo@zju.edu.cn

【摘要】原发性胃肠道淋巴瘤合并胃肠道癌的多原发性恶性肿瘤报道很少见。报告一例单形性嗜上皮性肠道T细胞淋巴瘤(monomorphic epitheliotropic intestinal t-cell lymphoma, MEITL)同时合并直

DOI: 10.3760/cma.j.cn321463-20230413-00577

收稿日期 2023-04-13 本文编辑 朱悦

引用本文:张炼,郑小龙,张雪群,等.单形性嗜上皮肠道T细胞淋巴瘤同时合并直肠癌1例[J]. *中华消化内镜杂志*, 2023, 40(12): 1021-1023. DOI: 10.3760/cma.j.cn321463-20230413-00577.



肠癌的多原发性恶性肿瘤的临床、病理特征及转归,提示 MEITL 同时合并直肠癌二重肿瘤罕见,呈高度恶性,临床处理上不能拘泥于结直肠癌的发现,应重视更严重的 MEITL 的诊治。

【关键词】 淋巴瘤, T 细胞; 单形性嗜上皮性肠道 T 细胞淋巴瘤; 结直肠癌; 多原发恶性肿瘤

Monomorphic epitheliotropic intestinal T-cell lymphoma concurring with rectal cancer: a case report

Zhang Lian^{1,2}, Zheng Xiaolong¹, Zhang Xuequn³, Xie Wanzhuo¹

¹Department of Hematology, The First Affiliated Hospital of Zhejiang University School of Medicine, Hangzhou 310003, China; ²Department of Hematology Oncology, Quzhou Municipal Hospital of Traditional Chinese Medicine, Quzhou 324002, China; ³Department of Gastroenterology, The First Affiliated Hospital of Zhejiang University School of Medicine, Hangzhou 310003, China

Corresponding author: Xie Wanzhuo, Email: xiewanzhuo@zju.edu.cn

患者女, 64 岁, 2021-12-25 因“腹痛 2 个月余”入住浙江大学医学院附属第一医院血液科。患者 2 个月余前出现下腹部绞痛, 无腹泻, 当地医院查肠镜示直肠癌可疑、乙状结肠息肉。2021-10-11 入住浙江大学医学院附属第一医院消化内科, 全腹部增强 CT 示右下腹局部回肠肠壁增厚, 淋巴瘤考虑。经科室讨论及患方同意决定先行结直肠肿物微创手术, 内镜下直肠见一 2.0 cm × 2.0 cm 广基腺瘤样隆起, 内镜黏膜下剥离术(endoscopic submucosal dissection, ESD)切除。病理示隆起型中-低分化腺癌(图 1), pT2NxMx。患者 ESD 术后 2 天出院, ESD 术后 3 周再入住胃肠外科, 复查结肠镜:距肛门 10.0 cm 可见 ESD 术后改变(图 2), 基底正常黏膜处亚甲蓝注射定位。复查全腹部 CT:右下腹局部回肠肠壁增厚, 病变较前增大。PET-CT 报告:右下腹局部回肠肠壁增厚, 最大截面大小 10.7 cm × 8.3 cm, 氟代脱氧葡萄糖(Fludeoxyglucose, 18F-FDG)摄取异常增高, 最大标准化摄取值(maximal standard uptake value, SUVmax) 15.2, 报告淋巴瘤(图 3);直肠癌 ESD 术后病灶处 18F-FDG 未见异常摄取。剖腹探查:小肠肿瘤广泛, 直径约 15.0 cm, 包膜脆, 有出血, 累及横结肠、回肠末段及阑尾, 与小肠系膜、大网膜广泛黏连。行经腹直肠癌根治术、肠肿瘤切除及回肠造瘘。病理:送检空肠+右半结肠+横结肠肿瘤切除标本紧贴回盲瓣处肠壁全层及浆膜面见一巨大肿物, 大小 14.7 cm × 13.2 cm × 5.6 cm;送检回肠标本, 距离回肠一端切缘 1.6 cm、另一端切缘 4.2 cm 处浆膜面见大小 6.0 cm × 4.3 cm × 1.0 cm 肿块, 肿物切面均灰白灰红, 实性软, 可见出血坏死。显微镜示:瘤组织弥漫分布, 瘤细胞体积小至中等, 单一, 异型明显(图 4)。直肠癌 ESD 术后病灶标本:黏膜慢性炎伴多核巨细胞反应, 未见肿瘤残留。免疫组化:CD2(+), CD3(+), CD4(-), CD5(-), CD8(+), CD10(-), CD19(-), CD20(-), CD23(-), CD30(-), CD56(+), Bcl-2(-), Bcl-6(-), CK(pan)(-), Cyclin D1(-), c-Myc(-), TDT(-), Granzyme B(+), TIA-1(+), Ki-67(+, 80%), EBER(-)(图 5)。病理诊断:单形性嗜上皮性肠道 T 细胞淋巴瘤(monomorphic epitheliotropic intestinal t-cell lymphoma, MEITL);直肠癌 ESD 术后黏膜慢性炎。术后 1 个月患者为行临床评估及化疗, 入住血液科。查体:胸骨压痛阴性, 中腹部约长 22 cm 手术瘢痕, 右下腹可见造瘘口。辅助检查:血红蛋白 117 g/L, 血浆 D-二聚体 1 340.00 μg/L, 白蛋白 44.1 g/L, 丙氨酸氨基转移酶 23 U/L, 铁蛋白 35 099.16 ng/mL, CEA、CA19-9、巨细胞/EB 病毒 DNA

未见异常。骨髓活检未见骨髓侵犯。白血病免疫分型提示未见明显异常淋巴细胞群。免疫球蛋白重链基因阴性。诊断:同时性多原发恶性肿瘤, MEITL, IV 期 A 组, 国际预后指数(IPI)3 分, 直肠中-低分化腺癌 I 期(cT2N0M0), 予环磷酰胺、多柔比星脂质体、长春地辛、泼尼松(CHOP)方案化疗。患者术后 8 个月死于全身衰竭。

讨论 多原发性恶性肿瘤(multiple primary malignancies, MPM)也称为多原发性癌症或重复癌症^[1], 在消化系统患者中的发生率较高, 以恶性肿瘤的发病时间不同, 分为同时性及异时性多发性原发性肿瘤, 而且异时发生较同时发生的明显多见^[2]。

然而, 与实体瘤相关的多原发性恶性肿瘤在淋巴瘤中很少见, 尤其发生同时性淋巴瘤和结直肠癌。Barron 等^[3]报道淋巴瘤和结直肠癌偶发联合发生的可能性小于 0.000 2%。同时性原发性 T 细胞淋巴瘤伴原发性结直肠癌的发生更为罕见^[4]。本例为 MEITL 合并直肠癌同时性多原发性恶性肿瘤, 复习相关文献至今未见其他报道。

MEITL 属于原发性胃肠道 T 细胞淋巴瘤, 临床罕见。本例病变组织中, 瘤细胞单形, 核仁清晰, 有明显的嗜上皮性表现。免疫表型 CD3、CD8、CD56 阳性, CD5 阴性, EBER 阴性, Ki-67(+, 80%), 明确为 MEITL^[5]。而且在 3 周的腹部 CT 复查中, 病变明显增大, 手术及病理示肿瘤巨大广泛, Ki-67 增殖指数显著升高, 呈高度的侵袭性。MEITL 可无特异临床表现, 本例手术探查及术后病理示 MEITL 累及横结肠、回肠末段, 而多次结肠镜检查无相关发现, 可能与内镜表现不典型时容易忽视有关。有报告肠镜检查如仅见黏膜红斑变化或黏膜颗粒状粗糙等非特异性表现, 在无临床怀疑的情况下, 仅通过结肠镜检查结果难以诊断^[6]。也有报告当结肠呈现浅表溃疡时容易误诊为溃疡性结肠炎^[7]。

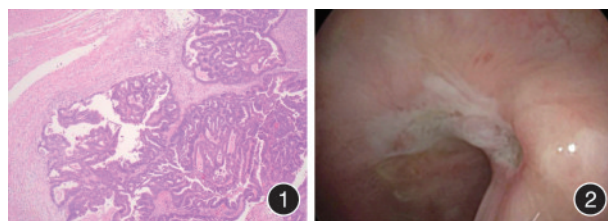


图 1 直肠肿物内镜黏膜下剥离术后病理示中-低分化腺癌 HE ×25 图 2 直肠肿物内镜黏膜下剥离术后第 4 周复查肠镜示直肠术后溃疡性改变

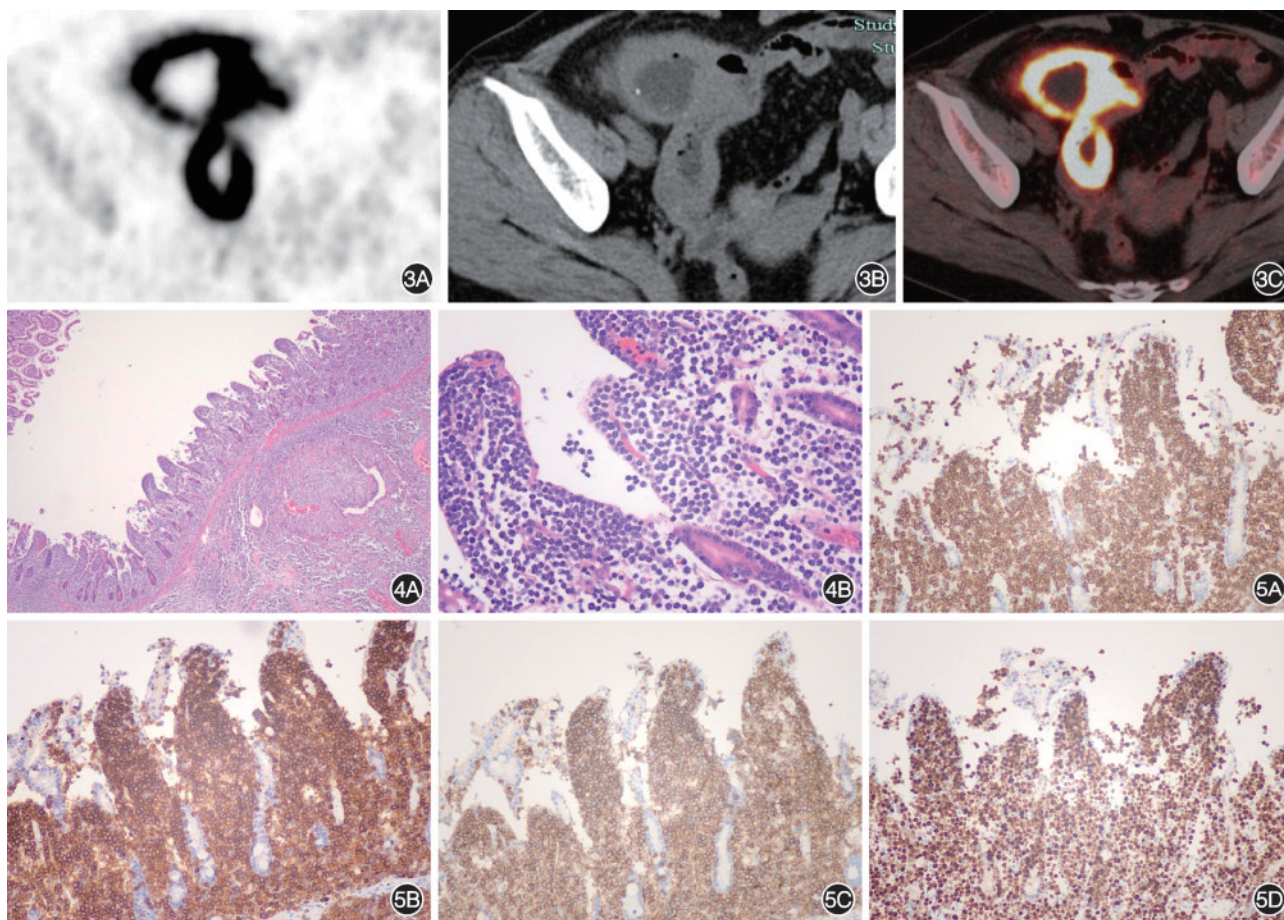


图3 全身氟代脱氧葡萄糖(18F-FDG) PET-CT扫描 3A:18F-FDG PET显像显示右下腹小肠节段性摄取异常增高,最大标准化摄取值(SUV_{max})15.2;3B:CT断层图像显示右下腹小肠壁增厚,壁柔软,管腔轻度扩张积液;3C:PET-CT融合图像显示增厚的管壁摄取一致性异常增高 **图4** 单形性嗜上皮性肠道T细胞淋巴瘤病变小肠组织病理示肠黏膜正常结构消失,瘤细胞单一,弥漫性分布,小到中等大小,异型明显 4A:HE ×25;4B:HE ×200 **图5** 单形性嗜上皮性肠道T细胞淋巴瘤病变小肠组织免疫组化结果 EnVision法 ×100 5A:CD3(+);5B:CD8(+);5C:CD56(+);5D:Ki-67(+,80%)

目前,在多原发恶性肿瘤治疗中,由于肿瘤多重性,病变性质广泛性,缺乏相应的临床指南及标准的治疗方法^[1]。因此不应低估多原发恶性肿瘤治疗所涉及的临床决策复杂性及重要性。由于淋巴瘤合并实体肿瘤的多原发恶性肿瘤的罕见性,临床并无成熟经验可循,本例我们先行ESD切除直肠病变,后开腹手术切除腹腔巨大肿瘤及行直肠癌根治术,术后病理报告直肠病变ESD切除完整。

多原发恶性肿瘤预后差异很大,主要取决于最具侵袭性肿瘤的结果。MEITL为高度恶性淋巴瘤,预后不良,本例在术后8个月死亡。文献报道MEITL中位生存期仅为7个月,1年总生存率仅为36%。我们的经验及教训,MEITL同时合并直肠癌多原发性恶性肿瘤诊治富有挑战性,临床不能拘泥于结直肠癌的发现,而应重视更严重的MEITL的诊断及处理。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突

参 考 文 献

- [1] Sidhom F, Jackson D, Ali A, et al. Multiple primary malignant neoplasms in African Americans: a case series and literature review[J]. Cureus, 2022, 14(1): e21585. DOI: 10.7759/cureus.21585.
- [2] Tanjak P, Suktipat B, Vorasan N, et al. Risks and cancer associations of metachronous and synchronous multiple primary cancers: a 25-year retrospective study[J]. BMC Cancer, 2021, 21(1): 1045. DOI: 10.1186/s12885-021-08766-9.
- [3] Barron BA, Localio SA. A statistical note on the association of colorectal cancer and lymphoma[J]. Am J Epidemiol, 1976, 104(5): 517-522. DOI: 10.1093/oxfordjournals.aje.a112324.
- [4] Tseng CE, Shu TW, Lin CW, et al. Synchronous adenocarcinoma and extranodal natural killer/T-cell lymphoma of the colon: a case report and literature review[J]. World J Gastroenterol, 2013, 19(11): 1850-1854. DOI: 10.3748/wjg.v19.i11.1850.
- [5] Swerdlow SH, Campo E, Pileri SA, et al. The 2016 revision of the World Health Organization classification of lymphoid neoplasms[J]. Blood, 2016, 127(20): 2375-2390. DOI: 10.1182/blood-2016-01-643569.
- [6] Hong YS, Woo YS, Park G, et al. Endoscopic findings of enteropathy-associated T-cell lymphoma type ii: a case series [J]. Gut Liver. 2016, 10(1): 147-151. DOI: 10.5009/gnl14457.
- [7] Tian S, Xiao SY, Chen Q, et al. Monomorphic epitheliotropic intestinal T-cell lymphoma may mimic intestinal inflammatory disorders[J]. Int J Immunopathol Pharmacol. 2019, 33(2): 2058738419829387. DOI: 10.1177/2058738419829387.

[1] Sidhom F, Jackson D, Ali A, et al. Multiple primary malignant neoplasms in African Americans: a case series and literature