

· 病例报告 ·

阑尾低级别黏液性肿瘤¹⁸F-FDG PET/CT 显像 1 例

毛军峰 王丽萍 王博 王之 方雷

解放军联勤保障部队第九四〇医院核医学科,兰州 730050

通信作者:方雷, Email: 116fanglei@163.com

DOI: 10.3760/cma.j.cn321828-20220129-00028

¹⁸F-FDG PET/CT imaging in low-grade appendiceal mucinous neoplasm: a case report

Mao Junfeng, Wang Liping, Wang Bo, Wang Zhi, Fang Lei

Department of Nuclear Medicine, the 940th Hospital of Joint Logistic Support Force of PLA, Lanzhou 730050, China

Corresponding author: Fang Lei, Email: 116fanglei@163.com

DOI: 10.3760/cma.j.cn321828-20220129-00028

患者男, 31 岁, 因糖类抗原 (carbohydrate antigen, CA) 19-9 进行性升高 7 个月余入院。入院后查 CA19-9 达 117.3 (正常参考值: 0~37) kU/L, 电子胃镜示: 萎缩性胃炎 C1 (非活动性)。电子肠镜检查示: 阑尾开口隆起性病变, 表面充血水肿, 考虑炎症改变; 全腹增强 CT (图 1A, 1B) 示阑尾壁弥漫性强化 (平均 CT 值 95 HU)。现患者偶感腹胀, 大小便正常, 半年内体质量减轻约 3 kg。腹部体格检查未及明显阳性体征。患者既往 2015 年 4 月曾因右下腹剧烈疼痛就诊于当地医院, 诊断为阑尾炎, 对症治疗后症状缓解。

为排除肿瘤行¹⁸F-FDG (放化纯>95%) PET/CT (德国 Siemens Biograph TruePoint 64 型) 显像, 结果 (图 1C、1D) 示: 阑尾 FDG 摄取未见异常增高, SUV_{max} 为 1.08, 同机 CT 示阑尾呈囊柱状增大 (大小为 6.2 cm×1.3 cm×1.1 cm), 阑尾壁弥漫性不均增厚 (最厚达 0.4 cm), 阑尾腔内充满低密度黏液 (平均 CT 值 10 HU); 口服体积分数为 2% 的泛影葡胺 1 000 ml 后 2 h 延迟显像: 阑尾 SUV_{max} 升高至 1.21, 阑尾腔内始终未见对比剂填充。考虑: (低代谢) 阑尾黏液性肿瘤 (appendiceal mucinous neoplasm, AMN)。患者遂转入普外科, 于全身麻醉下行腹腔镜阑尾切除术。术后病理示: 大体 (图 2A): 阑尾长 6 cm, 最大径 1.0~1.2 cm, 阑尾中部表面见一囊性半球形隆起, 最

大径 0.7 cm, 切面阑尾腔轻度扩张, 腔内充满黏液; 光学显微镜下 (图 2B): 阑尾局灶固有肌壁黏液变性, 黏膜固有层萎缩, 腺体迂曲呈“锯齿”状, 细胞核轻度增大, 腔内可见黏液。诊断为阑尾低级别黏液性肿瘤 (low-grade appendiceal mucinous neoplasm, LAMN)。

讨论 LAMN 2016 年被腹膜表面肿瘤学国际协助组定义为独立疾病^[1], 是 1 种罕见的类似腺瘤的低级别、生物学行为不清、未定或交界型肿瘤, 生长缓慢。因肿瘤中含大量黏液, 不嗜 FDG, 易漏诊。

部分 LAMN 因肿瘤细胞穿透阑尾壁并将黏液排入腹腔形成腹膜假黏液瘤 (pseudomyxoma peritonei, PMP)^[2], 但 PMP 患者预后较差, 5 年生存率为 53%~75%, 10 年生存率为 10%~32%^[3-4]。有学者对 LAMN 产生 PMP 的风险进行分型: I 型为伴有黏液上皮增生的非膨胀型阑尾, 或伴有发育不良黏液上皮的膨胀型阑尾; II 型为黏液突出进入阑尾壁, 穿透阑尾壁或沿阑尾外表面出现阑尾外黏液, 与 I 型 LAMN 患者相比, II 型 LAMN 患者出现 PMP 的风险更高^[5]。本例患者阑尾壁中部表面有一囊性半球形隆起, 病变已浸及固有肌层, 属于 LAMN II 型。

LAMN 患者大多无典型临床症状, 部分可表现为右侧髂

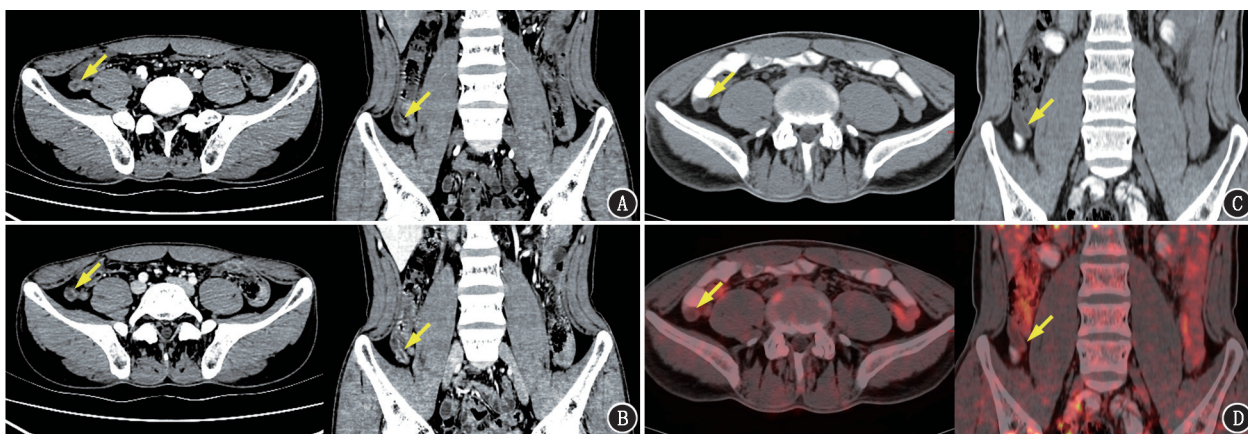


图 1 阑尾低级别黏液性肿瘤患者 (男, 31 岁) 增强 CT 图及¹⁸F-FDG PET/CT 显像图 (箭头示病灶)。A, B. 动脉期 (A) 及延迟期 (B) 增强 CT 图示阑尾壁弥漫性强化 (平均 CT 值 95 HU), 阑尾壁隆起性病变壁亦见强化, 阑尾腔内黏液未见强化; C. CT 图示阑尾呈囊柱状扩张, 阑尾壁增厚, 测最厚达 0.4 cm, 阑尾腔见水样低密度影 (平均 CT 值 10 HU); D. PET/CT 融合图显示阑尾壁显像剂摄取轻度增高, SUV_{max} 为 1.21, 阑尾腔内黏液未见显像剂摄取

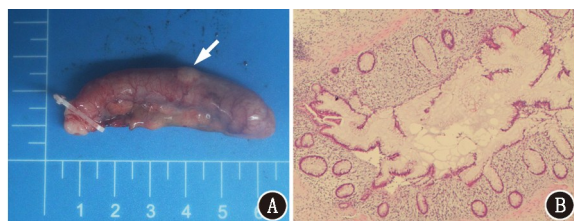


图2 阑尾低级别黏液性肿瘤患者(男,31岁)组织病理检查图。A.大体阑尾标本,阑尾肿胀,中部表面见一囊性半球形隆起(箭头示),最大径0.7 cm;B. HE染色($\times 40$)示阑尾局灶黏膜固有层萎缩,腺体迂曲呈“锯齿”状,细胞核轻度增大

窝疼痛(疼痛程度和性质类似阑尾炎)、右侧髂窝部肿块、胃肠道出血或肠梗阻等^[6],其他症状包括食欲减退、恶心、呕吐、体质量减轻和排便习惯改变等,因此许多局限于阑尾的LAMN经常被忽视并误诊为阑尾炎(本例患者就是由于临床认识不足而误诊为阑尾炎)。肿瘤标志物癌胚抗原(carcinoembryonic antigen, CEA)和CA19-9的水平对于LAMN诊断具有提示意义。国外学者研究表明,67%的AMN患者有不同程度的CEA和CA19-9升高^[7];大多数晚期AMN患者的肿瘤标志物升高程度与疗效相关,且高水平也预示着更高的复发或死亡风险^[8]。因此,当慢性阑尾炎患者CEA和CA19-9升高时,需要考虑AMN的可能。

LAMN在CT及MR上通常表现为“葫芦”状或管状囊性肿块,囊壁不均匀增厚,内囊壁粗糙,部分囊壁可见黏液及钙化。动脉期囊壁往往轻度环状强化,门静脉期呈进行性强化,部分病变可见微小的壁结节强化^[2]。MRI对于判断LAMN腔内黏液栓(黏液在T₂加权像上常呈高信号,T₁加权像信号强度取决于黏蛋白含量,但通常是低信号)位置(位于阑尾腔内或已突破肌层、浆膜外)及是否伴有PMP具有特异性^[4,9]。

虽然LAMN的¹⁸F-FDG PET/CT代谢程度不高,但作为全身性检查,¹⁸F-FDG PET/CT可提供更精准的TNM分期。LAMN最常见的转移路径是癌细胞浸透阑尾壁形成PMP,很少通过淋巴或血行扩散^[9]。¹⁸F-FDG PET/CT对于PMP的诊断价值在于其可预测PMP的无进展生存(progression-free survival, PFS)期。Dubreuil等^[10]研究发现,将SUV_{max}的参考值阈值设定为2.02,即可预测PFS,术前¹⁸F-FDG PET/CT的SUV_{max}是PMP患者PFS的独立预测因素。Hotta等^[11]将SUV_{max}的参考值阈值设定为2.7,使用¹⁸F-FDG PET/CT的腹膜癌指数预测PMP患者的PFS比单纯使用SUV_{max}效果更好。而李敬等^[12]发现,¹⁸F-FDG PET/CT不仅可以对AMN进行分级,还可较精准地显示肿瘤转移路径及PMP的¹⁸F-FDG代谢水平。

综上,LAMN作为不嗜FDG的低代谢肿瘤,诊断主要依赖于临床症状及同机CT的影像学表现,当患者有慢性阑尾炎病史,CEA或CA19-9进行性升高,CT表现为局灶性囊性肿块,囊壁增厚且环周强化时,即使阑尾FDG代谢未见明显升高,依据LAMN典型的影像学特征,要考虑LAMN可能,本例患者即是基于此种诊断思维而做出的正确诊断。

利益冲突 所有作者声明无利益冲突

作者贡献声明 毛军峰:研究实施、论文撰写;王丽萍:数据解释;王博、王之:数据采集;方雷:研究指导、论文修改、经费支持

参考文献

- [1] Carr NJ, Cecil TD, Mohamed F, et al. A consensus for classification and pathologic reporting of pseudomyxoma peritonei and associated appendiceal neoplasia: the results of the peritoneal surface oncology group international (PSOGI) modified Delphi process[J]. Am J Surg Pathol, 2016, 40(1): 14-26. DOI: 10.1097/PAS.0000000000000535.
- [2] Yu XR, Mao J, Tang W, et al. Low-grade appendiceal mucinous neoplasms confined to the appendix: clinical manifestations and CT findings[J]. J Invest Med, 2020, 68(1): 75-81. DOI: 10.1136/jim-2018-000975.
- [3] Kaneko M, Kawai K, Nozawa H, et al. Utility of computed tomography and ¹⁸F-fluorodeoxyglucose with positron emission tomography/computed tomography for distinguishing appendiceal mucocoele caused by mucinous adenocarcinoma from other pathologies[J]. Colorectal Dis, 2020, 22(12): 1984-1990. DOI: 10.1111/codi.15308.
- [4] Menassel B, Duclos A, Passot G, et al. Preoperative CT and MRI prediction of non-resectability in patients treated for pseudomyxoma peritonei from mucinous appendiceal neoplasms[J]. Eur J Surg Oncol, 2016, 42(4): 558-566. DOI: 10.1016/j.ejso.2016.01.005.
- [5] Klingbeil KD, Azab B, Moller MG. Low-grade appendiceal mucinous neoplasm and endometriosis of the appendix[J]. World J Surg Oncol, 2017, 15(1): 226. DOI: 10.1186/s12957-017-1294-1.
- [6] Lu Y, Li F, Ma R, et al. Clinicopathological features of low-grade appendiceal mucinous neoplasms confined to the appendix[J]. Front Oncol, 2021, 11: 696846. DOI: 10.3389/fonc.2021.696846.
- [7] Rymer B, Forsythe RO, Husada G. Mucocoele and mucinous tumours of the appendix: a review of the literature[J]. Int J Surg, 2015, 18: 132-135. DOI: 10.1016/j.ijsu.2015.04.052.
- [8] Fournier K, Rafeeq S, Taggart M, et al. Low-grade appendiceal mucinous neoplasm of uncertain malignant potential (LAMN-UMP): prognostic factors and implications for treatment and follow-up[J]. Ann Surg Oncol, 2017, 24(1): 187-193. DOI: 10.1245/s10434-016-5588-2.
- [9] Van Hooser A, Williams TR, Myers DT. Mucinous appendiceal neoplasms: pathologic classification, clinical implications, imaging spectrum and mimics[J]. Abdom Radiol (NY), 2018, 43(11): 2913-2922. DOI: 10.1007/s00261-018-1561-9.
- [10] Dubreuil J, Giammarile F, Rousset P, et al. FDG-PET/ceCT is useful to predict recurrence of Pseudomyxoma peritonei[J]. Eur J Nucl Med Mol Imaging, 2016, 43(9): 1630-1637. DOI: 10.1007/s00259-016-3347-z.
- [11] Hotta M, Minamimoto R, Gohda Y, et al. Impact of a modified peritoneal cancer index using FDG-PET/CT (PET-PCI) in predicting tumor grade and progression-free survival in patients with pseudomyxoma peritonei[J]. Eur Radiol, 2019, 29(10): 5709-5716. DOI: 10.1007/s00330-019-06102-1.
- [12] 李敬, 邵莹, 李建南. ¹⁸F-FDG PET/CT对阑尾黏液性肿瘤的诊断价值[J]. 中华核医学与分子影像杂志, 2020, 40(9): 528-532. DOI: 10.3760/cma.j.cn321828-20190828-00184.

Li J, Gao Y, Li JN. Diagnostic value of ¹⁸F-FDG PET/CT for the appendiceal mucinous neoplasms[J]. Chin J Nucl Med Mol Imaging, 2020, 40(9): 528-532. DOI: 10.3760/cma.j.cn321828-20190828-00184.

(收稿日期:2022-01-29)