



[DOI] 10.3969/j.issn.1001-9057.2023.12.012

http://www.lcnkzz.com/CN/10.3969/j.issn.1001-9057.2023.12.012

· 论著 ·

11 例肾上腺碰撞瘤临床特点分析

李贵梅 李冰 程愈 臧丽 郭清华 谷伟军

[摘要] **目的** 通过对肾上腺碰撞瘤病例的特点进行总结分析,提高临床医生对其认识及诊治水平。**方法** 回顾性选取 2008 年 10 月~2022 年 8 月中国人民解放军总医院第一医学中心收治的经术后病理确诊为肾上腺碰撞瘤患者 11 例,收集其一般临床资料、实验室、影像学检查及功能评估结果、术后病理资料及随访情况,分析总结其临床特征。**结果** 11 例患者平均年龄(56.00 ± 6.96)岁,其中男性占 54.5%、女性占 45.5%;左侧肿瘤占 36.4%、右侧肿瘤占 63.6%;其中体检发现 5 例(45.5%),因高血压病入院 5 例(45.5%)。功能评估方面,3 例患者考虑存在亚临床库欣综合征,其余均为无功能腺瘤。病理分型包括 5 种类型;彩色超声可表现为低回声或等回声肿块,边界尚清;CT 可表现为不均匀混杂低密度影,边界较清、CT 值不等,内见钙化及脂肪密度影,增强后不均匀强化;MRI 特点为短及稍长 T1、稍长及稍短 T2 异常信号影,DWI 稍高及低信号,皮质期、髓质期实性部分持续性轻至中度异常强化,延迟期呈稍低信号,反相位图像若含脂肪信号减低,含有血管瘤成分可表现为反相位未见明显减低。**结论** 肾上腺碰撞瘤临床常因体检意外发现,以无功能腺瘤多见,也可能为亚临床库欣综合征等,超声、CT 及 MRI 等影像手段可辅助诊断,确诊需依据病理检查结果。病理检查结果可存在两种或两种以上不同类型的肿瘤并存。该疾病经手术完整切除后一般预后良好。

[关键词] 肾上腺碰撞瘤; 临床特点; 病理检查; 影像学**[中图分类号]** R736.6**[文献标识码]** A

碰撞瘤指组织学来源完全不同的 2 个独立肿瘤彼此靠近或融合,两者在组织学上分界清晰,可为 2 种良性肿瘤或 2 种恶性肿瘤,也可 1 种良性肿瘤和 1 种恶性肿瘤共存,故也称邂逅性肿瘤^[1]。肾上腺碰撞瘤(ACTs)以皮质腺瘤和髓脂肪瘤最常见^[2-3],也可见皮质腺瘤和嗜铬细胞瘤或血管瘤、肾上腺皮质癌和转移瘤或髓脂肪瘤、肾上腺癌肉瘤和转移瘤、髓脂肪瘤和霍奇金淋巴瘤等混合构成^[4]。该病由 R. Meyer 于 1919 年首次报道,目前尚无准确的流行病学数据。为进一步提高临床医师对该类疾病的认识,现对 11 例经病理确诊为 ACTs 的患者资料总结分析如下。

对象与方法

1. 对象:回顾性收集 2008 年 10 月~2022 年 8 月中国人民解放军总医院第一医学中心收治的 ACTs 患者 11 例。纳入标准:肾上腺术后同一个部位的病理结

果存在 2 种或 2 种以上不同类型的肿瘤。排除标准:肾上腺占位术后,同一个部位的病理结果只有一种病理类型或不同部位的病理结果存在不同病理类型。所有患者在数据采集、分析等过程中均未暴露其隐私信息,医院伦理委员会豁免患者的知情同意。

2. 方法:回顾性分析 11 例患者的一般临床表现、实验室、影像学检查及功能评估结果、术后病理资料及随访情况。功能评估包括皮质醇、促肾上腺皮质激素(F-ACTH)节律筛查(0am-8am-4pm),必要时行过夜 1 mg 地塞米松抑制实验(1 mg DST)、小剂量地塞米松抑制实验(LDDST)、大剂量地塞米松抑制实验(HDDST);肾素-血管紧张素-醛固酮系统(RASS)筛查包括血浆肾素活性(PRA)、血浆醛固酮水平(ALD),必要时行卡托普利试验和盐水输注试验;髓质激素筛查包括 3-甲氧基酪胺(3-MT)甲氧基肾上腺素(MN)、甲氧基去甲肾上腺素(NMN)、肾上腺素(E)、去甲肾上腺素(NE)、多巴胺(DA)等;影像学检查包括腹部彩超、肾上腺 CT、肾上腺 MRI。另 1 例因肾透明细胞癌检查发现肾上腺肿瘤,在行肾癌手术同时行肾上腺占位切除术,未行功能评估。术后送检标本由 2 名病理医生阅片,同时进行免疫组化检测。

作者单位:655000 云南曲靖,曲靖市第一人民医院内分泌科(李贵梅);中国人民解放军总医院第一医学中心内分泌科(李冰、程愈、臧丽、郭清华、谷伟军)

通讯作者:谷伟军, E-mail: guweijun301@163.com

结 果

1. 11 例患者的一般临床资料:11 例患者中男 6 例(54.5%)、女 5 例(45.5%),年龄 45~68 岁,平均年龄(56.00±6.96)岁,中位诊断年龄 56 岁;BMI(26.7±3.3)kg/m²;入院原因分别为体检 5 例(45.5%)、腰痛 1 例(9.1%)、高血压病史 5 例(45.5%);均为单侧发病,其中左侧 4 例(36.4%)、右侧 7 例(63.6%);9 例伴高血压病[收缩压(130.6±20.7)mmHg,舒张压(79.2±8.1)mmHg],3 例伴糖尿病,1 例为空腹血糖受损,1 例伴肾透明细胞癌。见表 1。

2. 11 例患者的实验室检查及功能评估相关结果:10 例患者在术前进行功能评估,病例 10、11 存在亚临床库欣综合征;病例 1 腰痛入住泌尿外科,F-ACTH 检查异常,但未联系内分泌科会诊进一步行地塞米松抑制试验,术后 4 pm 的 F 为 200 nmol/L,术后血压正常,考虑为亚临床库欣综合征可能。其余 7 例均为无功能腺瘤,其中 3 例存在高血压病伴轻度一过性低钾血症,可能原因为服珍用菊降压片(1 例)、服用北京降压 0 号(1 例),均与其中的利尿剂成分相关;另 1 例有甲

亢病史考虑血钾细胞内外转移所致。见表 2。

3. 11 例患者的影像学检查结果:8 例患者行腹部彩色超声检查:见大小不一的低回声或等回声肿块,边界尚清,其内未见血流信号或周边可见少许血流信号。8 例患者行肾上腺 CT 检查:瘤体最小 1.43 cm×1.03 cm,最大 12.00 cm×6.30 cm;CT 值-81~41 HU 不等,其内密度欠均匀。皮质腺瘤合并髓样脂肪瘤,可表现为不均匀混杂低密度影,边界较清,CT 值 5~19 HU,内见钙化及脂肪密度影,增强后不均匀强化。合并血管瘤,可表现为病灶密度不均匀,中心呈相对等密度改变,CT 值 37 HU 较髓脂肪瘤高。病例 9 的临床 CT 检查结果见图 1。合并神经内分泌肿瘤可表现为略高密度结节影,CT 值 35 HU 与血管瘤相近,增强后动脉期轻微强化,门脉期及延迟期渐进性部分强化,其实质内高密度结节未见明显强化。MRI 检查:瘤体最小 1.30 cm×1.00 cm×0.80 cm,最大 10.70 cm×6.10 cm,其中皮质腺瘤并髓样脂肪瘤,病灶边缘光滑,可表现为稍长 T1、稍长 T2 异常信号,个别见可见假包膜,含脂肪则反相位信号减低,DWI 稍高信号,增强扫描皮质期不均匀强化,髓质期进一步强化,延迟期强化略减低。

表 1 11 例患者的一般临床资料

病例 序号	年龄 (岁)	性别	BMI (kg/m ²)	WHR	SBP (mmHg)	DBP (mmHg)	主诉	位置	是否伴 高血压病	是否伴 糖尿病	是否伴 低血钾	是否伴其他 恶性肿瘤
1	48	男	24.3	N	170	100	腰痛	左侧	是	是	否	否
2	54	女	28.4	N	120	80	体检	右侧	否	否	否	否
3	45	女	22.8	N	150	85	高血压病 4 年	右侧	是	否	是	否
4	56	女	27.3	0.83	160	72	高血压病 15 年	右侧	是	IFG	是	否
5	57	男	25.4	0.89	149	83	体检	左侧	否	是	否	否
6	62	男	29.7	N	168	101	体检	右侧	是	否	否	是
7	61	男	26.2	0.93	112	64	高血压病 10 年	左侧	是	是	是	否
8	68	男	25.1	N	97	64	高血压病 30 年	右侧	是	否	否	否
9	61	男	26.5	0.91	137	88	高血压病 3 年	右侧	是	否	否	否
10	48	女	34.6	0.96	144	85	体检	右侧	是	否	否	否
11	48	女	23.7	0.86	174	89	体检	左侧	是	否	否	否

注:N:无相关数据;WHR:腰臀比;SBP:收缩压;DBP:舒张压;IFG:空腹血糖受损

表 2 11 例患者的实验室检查及功能评估相关结果

病例 序号	F(nmol/L) (0am-8am-4pm- 1mgDST-LDDST-HDDST)	ACTH(pmol/L) (0am-8am-4pm- 1mgDST-LDDST-HDDST)	PRA(uIU/ml) (卧位-立位 2h- 立位 4h)	ALD(ng/dl) (卧位-立位 2h- 立位 4h)	血 3MT,MN,NMN (nmol/L)	血 E、NE、DA (pg/ml)	尿 E、NE、 DA (μg/24h)
1	354.1-226.7-229.2-X-X-X	<2.2- <2.2-2.3-X-X-X	0-0-X	5.1-8.6-X	N	N	N
2	83.2-481.1-140.4-X-X-X	3.9-6.9-3.5-X-X-X	0.3-1.4-X	13.7-15.7-X	N	N	N
3	77.8-241.1-100.4-28.5-X-X	1.6-3.4-2.7- <1.1-X-X	0.2-0.8-X	10.5-X-17.6	X-X-X	X-X-X	33.2-3.9-X
4	53.9-1 074.2-130.0-82.3-107.2-95.2	3.2-17.5-3.4-3.4-3.11-3.0	1.0-8.4-10.0	18.7-90.4-47.7	<0.1- <0.1-0.2	36.5-65.9-53.6	X-X-X
5	81.0-289.1-167.1-42.5-X-X	<1.1-1.3-1.1- <1.1-X-X	N	N	<0.1- <0.1-0.2	36.5-65.9-53.6	X-X-X
6	N	N	N	N	N	N	N
7	308.4-304.4-316.6-31.1-27.6-X	2.7-3.1-3.1- <1.1- <1.1-X	<0.5- <0.5-0.5	2.8-3.0-3.3	<24- <95-183	X-X-X	X-X-X
8	34.8-310.8-188.7- <25.7-X-X	<1.1-6.8-4.4-1.1-X-X	13.5-117.0-X	1.4-2.4-X	N	N	N
9	77.6-281.1-129.3-40.4-X-X	1.5-3.6-2.2-1.4-X-X	N	N	<0.1- <0.1-0.2	X-X-X	X-X-X
10	75.8-416.9-288.6-122.3-112.8-X	<2.2- <2.2- <2.2-4- <2.2-X	15.1-47.4-53.8	14.0-80.2-69.3	<24- <32.4-287	22-689.2- <33	X-X-X
11	242.3-295.3-267.2-350.6-357.8-448.5	3.4-4.2-4.2-4.3-4.6-6.0	1.5-7.2-5.8	10.5-40.4-40.0	<24- <59.5-343.2	X-X-X	X-X-X

注:N:未评估功能;X:无相关数据

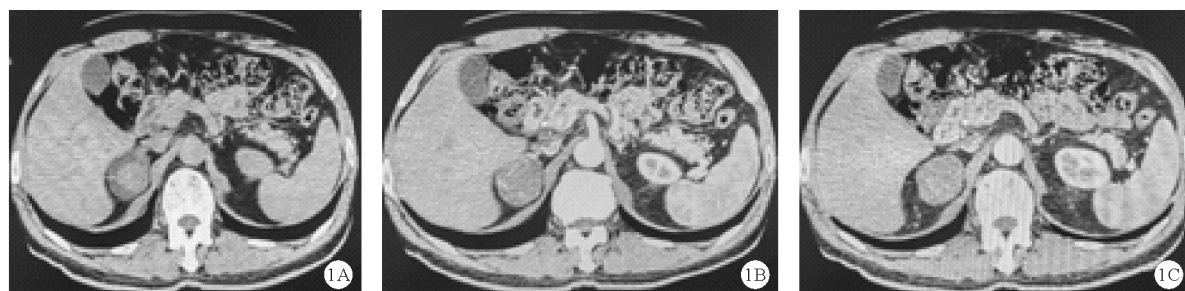


图1 病例9的肾上腺CT检查结果(A:CT平扫示不均匀混杂低密度影,边界较清,内见钙化及脂肪密度影;B:增强扫描动脉期可见不均匀强化;C:增强扫描静脉期可见不均匀强化,部分廓清;横断面)

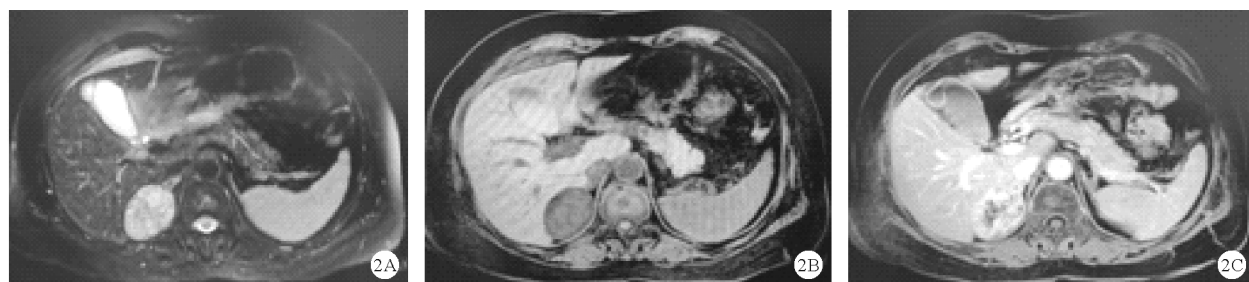


图2 病例2的MRI检查结果(A: MRI平扫示病灶边缘光滑,可表现为稍长T1、稍长T2异常信号,皮质期不均匀强化,DWI稍高信号;B:髓质期进一步强化;C:延迟期强化后减低;横断面)

病例2的MRI检查结果见图2。皮质腺瘤合并血管瘤可表现为稍长及短T1、稍长及短T2异常信号影,反相位图像病变外周信号明显减低,DWI程稍高混杂信号;皮质期、髓质期持续性轻至中度不均匀异常强化,延迟期呈稍低信号。含有血管瘤成分可表现为反相位未见明显减低。合并神经内分泌肿瘤可表现为稍长T1、稍长T2信号,DWI呈稍高信号,反相位病灶信号明显减低,增强扫描病灶呈持续性不均匀轻中度强化,其内见不强化区。

4. 11例患者的病理结果:术后病理组织均为灰黄色椭圆形肿物,大小不等,包膜完整,切面金黄间灰红色、灰白,质软或中,部分实性。免疫组化结果:7例为肾上腺皮质腺瘤并髓样脂肪瘤,1例肾上腺血管瘤并髓样脂肪瘤,1例肾上腺皮质腺瘤并神经内分泌肿瘤,1例肾上腺皮质腺瘤并血管瘤(图3);1例肾上腺血管瘤、皮质腺瘤并髓样脂肪瘤并存(图4)。

5. 11例患者的随访情况:所有患者随访至今,最长168个月,术后均无复发,未出现低钾血症。病例1存在亚临床库欣综合征,术后停药1年后血压再次升高,需要口服降压药控制血压。病例10术后降压药减量,考虑患者血压升高与ACTs分泌皮质醇增多有关,同时患者系中老年女性、肥胖、考虑可能合并存在原发性高血压。病例11入院血压174/89 mmHg,术前123/77 mmHg,术后120/75 mmHg,期间一直未服用药物,考虑其亚临床库欣综合征尚处于疾病早期,未引起

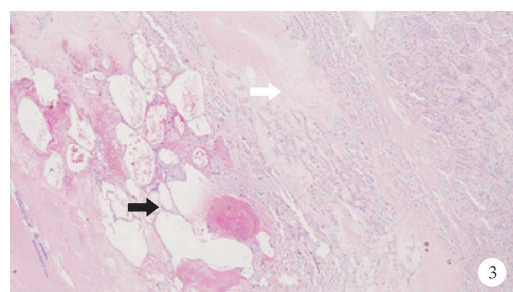


图3 病例5病理组织免疫组化结果[皮脂腺瘤,如白色箭头所示;血管瘤,如黑色箭头所示;苏木素-伊红(HE)染色,×200]

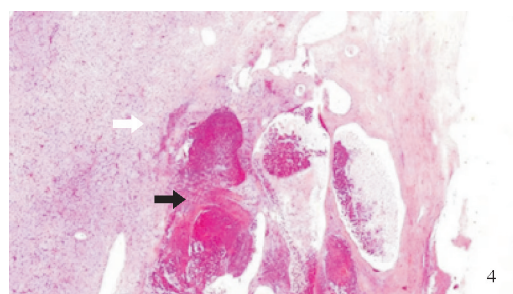


图4 病例9病理组织免疫组化结果(皮脂腺瘤,如白色箭头所示;血管瘤,如黑色箭头所示;HE染色,×200)

明显的血压升高,其入院血压偏高可能与应激有关。其余6例ACTs伴高血压病患者中,3例术后停药3例术后药物无增减。合并糖尿病及糖耐量异常患者的功能评估为无功能腺瘤,且术后与术前类似,提示糖尿病或糖耐量异常为ACTs的合并症。

讨 论

碰撞瘤好发于 60 岁以上人群,男性多于女性,临床表现无特异性^[5]。目前 ACTs 多为个案报道,流行病学仍不清楚^[4]。本研究中患者的年龄为 45~68 岁,平均年龄 56 岁,男性占 54.5%、女性占 45.5%,与碰撞瘤文献报道结果类似^[5]。临床特征方面,ACTs 成分中以髓样脂肪瘤常见^[2-3,6],因含良性成分较多见,故可无特异性临床表现,本研究患者也符合此特点。ACTs 的临床表现与单一肾上腺肿瘤相比并无特异性,内分泌实验室相关激素检查进行功能性评估和影像学检查对肿瘤的性质评估必不可少,但术前确诊率较低,主要靠术后病理检查结果确诊^[5]。

文献报道 ACTs 的功能评估结果可表现为库欣综合征、嗜铬细胞瘤^[7]等。本研究患者中 3 例为亚临床库欣综合征,7 例为无功能腺瘤。关于 ACTs 的影像学特点,彩色超声表现为大小不等的低回声结节,边界欠清、形态尚规则,其内未见血流信号,提示良性。临床上需结合 CT 和 MRI 检查结果联合评估,本研究中 6 例患者瘤体直径 4 cm 以上,5 例患者瘤体直径 3 cm 以下,CT 提示瘤体大小不等,形状比较规则,病灶与周围组织分界尚清,CT 值不等,内密度欠均匀,增强后均可表现动脉期轻中度强化,实质期持续强化,门脉期及延迟期渐进性部分强化,与相关文献报道结果一致^[3,8]。肾上腺腺瘤 CT 值 ≤ 10 HU 一般诊断为腺瘤^[9]。本研究中 CT 值 $-81 \sim 41$ HU 不等,考虑瘤内组织成分不一致所致。文献报道嗜铬细胞瘤 CT 可见包膜完整,平扫结果示不均匀密度,增强后为不均匀强化,局部强化不明显时,肿块内可能出血、坏死、囊变和钙化,肿瘤体积越大,越容易出现坏死及囊性变或出血,MRI 表现为 T1WI 及 T2WI 信号不均匀^[10]。腺瘤因其细胞内含有脂肪成份,MRI 压脂序列可区分良性与恶性,良性腺瘤成分在反相位信号降低,而转移性肿瘤信号没有降低。临床上可结合肿瘤大小、CT 值、反相位信号减低、血儿茶酚胺代谢产物水平等情况与嗜铬细胞瘤相鉴别。临床上若观察到肾上腺的同一肿块内影像表现明显不同,根据肿块直径、平扫密度/信号、强化方式和强度等,结合临床功能评估,考虑存在 ACTs 的可能。

根据肾上腺意外瘤的专家共识^[9],术前评估为无功能腺瘤,瘤体在 3 cm 以上可推荐手术,但较小的病例可随诊,在随诊中若瘤体的最大径增长 $>20\%$ 且增加 >5 mm 可建议手术。ACTs 的处理很大程度上取决于构成成分;若影像学表现为良性,且无特异性激素改变,应在 6 个月、12 个月和 24 个月时重复进行实验室内分泌检查和影像学检查,随访 5 年。当肿瘤直径 ≥ 4 cm

或出现内分泌相关激素异常及相应症状,应考虑手术治疗。术后随访对于早期发现局部复发和远处转移至关重要^[11]。本研究 11 例患者中 9 例病理结果包含髓样脂肪瘤,其包含成熟脂肪和髓样组织,被认为是良性肿瘤。一般良性肿瘤预后较好^[11-12],本研究患者随访至今,最长 168 个月,肾上腺肿瘤术后均无复发。

目前碰撞瘤的发生原因不清,可能的机制有^[13]:(1)相邻区域内两个肿瘤的偶然重合;(2)一个单一的致瘤刺激改变了一个特定的位置,并允许多个肿瘤在附近发生;(3)肾上腺局部一种肿瘤的存在可能改变局部环境,为其他肿瘤的发展创造了理想的条件。故肾上腺可发生多种肿瘤的碰撞。同时我们在查阅病例的过程中还可观察到诊断为髓样脂肪瘤的患者部分术后病理可见局部皮质结节状增生或髓样脂肪瘤旁少量组织结节状增生、周围肾上腺结节状增生,考虑可能为碰撞瘤的早期组织学类型。

ACTs 临床常因体检意外发现,以无功能腺瘤多见,可能存在亚临床库欣综合征,伴或不伴嗜铬细胞瘤,可伴低血钾、高血压病或糖尿病等。通过超声、CT 及 MRI 等影像手段可辅助诊断,最终的术后病理、免疫组化检查确诊。本研究总结了中国人民解放军总医院第一医学中心收治的 ACTs 患者的临床特点,可帮助临床医师进一步了解这类疾病,提高对其的认识及诊治水平。

参 考 文 献

- [1] 潘晓强,李蕴潜,李晗,等.碰撞瘤研究的相关进展及历史回顾[J].中华放射肿瘤学杂志,2017,26(12):1475-1478.
- [2] Zhang CX, Tian Y. Adrenal collision tumor composed of adrenocortical adenoma and pheochromocytoma[J]. Chin Med J (Engl), 2018, 131(3):374-375.
- [3] 户燕姣,张伟,姜天娇,等.肾上腺碰撞瘤的临床病理学特征[J].诊断病理学杂志,2021,28(8):639-642.
- [4] Lai Y, Zhou L, Hu J, et al. Adrenal collision tumor(parachordoma and ganglioneuroma): A Case report[J]. Mol Clin Oncol, 2018, 8(6):740-742.
- [5] 陈慧帆,朱玉春.碰撞瘤的病理临床影像和治疗研究进展[J].实用医学影像杂志,2020,21(6):643-644.
- [6] 刘勇山,梁文娟,李万湖,等.肾上腺碰撞瘤 2 例报道并影像表现复习[J].中国中西医结合影像学杂志,2014,12(6):664-666.
- [7] Ukimura O, Inui E, Ochiai A, et al. Combined adrenal myelolipoma and pheochromocytoma[J]. J Urol, 1995, 154:1470.
- [8] 汪兰英,李伟博,秦恺,等.肾上腺碰撞瘤 1 例[J].中国医学影像技术,2020,36(1):85.
- [9] 肾上腺意外瘤多学科管理专家组.肾上腺意外瘤多学科管理专家共识[J].中华内分泌外科杂志,2021,15(4):325-336.
- [10] 陈继文,张伟强,肖宝臣,等.典型与不典型肾上腺嗜铬细胞瘤 MSCT 表现对比分析[J].实用肿瘤杂志,2017,32(1):26-29.
- [11] Tang Q, Ji J, Zhou X, et al. Adrenal collision tumor: a case report of the coexistence of myelolipoma and ganglioneuroma[J]. Int J Clin Exp Pathol, 2019, 12(6):2302-2304.
- [12] Lai Y, Zhou L, Hu J, et al. Adrenal collision tumor(parachordoma and ganglioneuroma): A case report[J]. Mol Clin Oncol, 2018, 8(6):740-742.
- [13] Siddiqi AJ, Miller FH, Kasuganti D, et al. Adrenal hemangioma-adenoma: an exceedingly rare adrenal collision tumor[J]. J Magn Reson Imaging, 2009, 29(4):949-952.

(收稿日期:2023-04-06)

(本文编辑:高婷)