罕少见病例

[DOI] 10.3969 / j. issn. 1671-6450.2023.07.017

## 肺胎盘样变形 1 例并文献复习

燕晶晶,高佳瑶,龙泓,朱瑞萍,于晶,伍建林

作者单位: 116001 辽宁大连,大连大学附属中山医院放射科(燕晶晶、高佳瑶、龙泓、于晶、伍建林),病理科(朱瑞萍)通信作者:于晶,E-mail;yujing1969@163.com



【摘 要】 报道1例肺胎盘样变形的临床资料,并进行文献复习。

【关键词】 肺胎盘样变形;诊断;治疗

【中图分类号】 R563 【文献标识码】 B

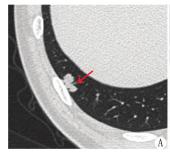
Pulmonary placental deformation: a case report and literature review Yan Jingjing, Gao Jiayao, Long Hong, Zhu Ruiping, Yu Jing, Wu Jianlin. Department of Radiology, Zhongshan Hospital, Dalian University, Liaoning Province, Dalian 116001, China

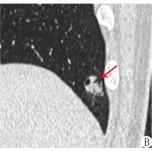
Corresponding author: Yu Jing, email: yujing1969@ 163. com

[Abstract] Clinical data of 1 case of pulmonary placental deformation were reported and literature review was conducted.

[Key words] Pulmonary placental deformation; Diagnosis; Treatment

患者,男,37岁,因"外院体检发现右肺下叶外基底段结节病灶3个月余"于2020年12月9日入院。体检发现病变后患者无胸痛、胸闷,无咳嗽、咯痰,无呼吸困难,无声音嘶哑、饮水呛咳,无四肢关节疼痛等症状。经常饮酒,无吸烟史。肺功能及实验室检查均正常。胸部CT表现:右肺下叶外基底段见孤立性不规则实性结节灶,界限清楚,大小2.0 cm×1.4 cm×1.0 cm,密度欠均匀,CT值-22~-60 HU,其内见多发小囊腔影,边缘见分叶征,无毛刺,与邻近胸膜宽基底相连,无胸膜凹陷征;CT增强后实性成分呈轻中度强化,动脉期、静脉期CT值分别为7~31 HU、6~30 HU。纵隔内未见淋巴结肿大,未见胸腔积液征象,见图1。





注:A. 右肺下叶外基底段近胸膜处不规则实性结节灶,边界清晰,见浅分叶, 无毛刺;B. 实性结节灶可见小囊腔。

图 1 患者横轴位、矢状位胸部 HRCT 表现

患者于全麻下经胸腔镜行右肺下叶结节肺叶楔形切除术。 术中探及右肺下叶外基底段结节质地硬韧,少许胸膜粘连但未 累及脏层胸膜。病理显示:病变内见多发大小不一绒毛乳头状结构呈水肿样改变,形似胎盘绒毛,表面被覆单层立方上皮细胞,间质内见纤维血管轴心。免疫组化:CK(肺泡上皮+)、Vimentin(-)、EMA(肺泡上皮+)、TTF-1(肺泡上皮+)、S-100(-)、Ki-67(index<1%),见图 2。最终病理诊断:右肺下叶肺胎盘样变形(PTL)。患者术后恢复良好,随访 2 年无复发。

讨 论 肺胎盘样变形 (placental transmogrification of the lung, PTL) 是一种极罕见的肺部良性病变, 1979 年由 Mc-Chesney [1] 首次提出, 认为是一种肺异常的局灶破坏性病变, 与肺大疱性肺气肿有关。PTL 的发病率为  $0.025\% \sim 0.3\%$  [2], 其特征性表现为类似胎盘绒毛状结构, 而不具有胎盘的生物学特性, 其发病机制尚不清楚。

在影像学上,多数病例报道为大疱性肺气肿改变,因此,一些学者认为 PTL 为大疱性肺气肿的变异或继发改变。Fidler 等[3]分析了 3 例巨大肺大疱型 PTL 的病例资料后,认为 PTL 是一种罕见的肺大疱性肺气肿的病理亚型。Cavazza 等[4]认为 PTL 是不成熟间质透明细胞的良性增殖继发囊性变,而非肺气肿的变异。有研究提示 PTL 与肺错构瘤有关, Xu 等[5]分析了 38 例肺错构瘤患者的病理资料后,发现 7 例 PTL,主张 PTL 是一种错构瘤样改变。最近, Machuca 等[6]报道了 1 例类似胎盘绒毛状突起的肺部炎性软骨样错构瘤,考虑是慢性炎性反应所致,而其炎性浸润机制尚不明确。

PTL 好发于 20~50 岁的中青年男性<sup>[2-6]</sup>。患者通常无症状,体检时偶然发现,部分可出现胸痛、胸闷、咳嗽、肺气肿、气胸或呼吸困难等症状和体征。本例患者无症状,除肺部孤立结节外,无其他异常。



注:A. 多个水肿样绒毛乳头状结构,类似胎盘绒毛组织,绒毛结构轴心见纤维血管组织;B. 免疫组化绒毛结构上皮表面标志物,细胞角蛋白 CK(+);C. 甲状腺转录 因子 1 TTF-1(+);D. 上皮膜抗原 EMA(+);E. Ki-67(<1%)

图 2 病变组织病理检查结果(HE 染色,×200)

目前 PTL 影像学表现主要分为 3 种类型<sup>[7]</sup>:最常见的是大疱性肺气肿型;其次是薄壁囊性病变混合实性结节型;第三种是罕见的单纯实性结节型。本例为孤立实性结节罕见报道。在 HRCT 上,实性成分可能含有脂肪、空气或软组织成分,罕见钙化,但 HRCT 和 MR 不考虑肺错构瘤及脂肪瘤。

PTL 应与肺隔离症、支气管囊肿、先天性腺瘤样畸形、硬化性肺泡细胞瘤、肺黏液性肿瘤等鉴别。本例 HRCT 表现为肺孤立性实性结节灶,形态不规则,内含薄壁囊腔,可见分叶征,需警惕含囊腔型肺癌。含囊腔型肺癌多形态不规则,可见毛刺征、分叶征、胸膜凹陷征,且其囊腔内多见细小分隔,囊壁可厚薄不均<sup>[8]</sup>。而本例病变边界清晰,其内囊腔壁薄均匀,无分隔,且无胸膜凹陷征,免疫组化指标 ki-67 < 1%,提示良性病变。结合薄层扫描及后处理重建技术有助于显示及评估病变细节征象。

PTL 罕见,影像学检查鉴别困难,病理检查是诊断该病的金标准。PTL 大体上通常表现为无血液或黏液填充、亦无液化坏死或感染的混合囊实性病变,实性成分切面见多发细小成簇的囊泡样结构,胸膜无凹陷,通常不累及脏层胸膜,周围可见肺气肿或多发肺大疱。镜下特征性表现为绒毛乳头状结构,表面被覆增生的肺泡上皮细胞,形似胎盘绒毛结构。乳头状结构由增生的肺间质透明细胞及包裹的纤维状核心组成,纤维状核心内含扩张的毛细血管、炎性细胞及脂肪细胞<sup>[9]</sup>。免疫组化可见绒毛结构表面上皮标志物阳性,如甲状腺转录因子1(thyroid transcription factor-1,TTF-1)、细胞角蛋白(cytokeratin,CK)、上皮膜抗原(epithelial membrance antigen,EMA)弥漫阳性。间质透明细胞弥漫性高表达 CD10 和波形蛋白,该指标可能是诊断线索<sup>[10]</sup>。此外,间质透明细胞显示 Ki-67 低表达,提示良性病变可能性大。

尽早手术切除病灶是首选的治疗方法,保守治疗可能导致病情进展而影响肺功能[11]。国内外文献复习发现,部分病例因病变行全肺叶切除后,仍能取得很好的疗效及生活质量,且 PTL 考虑为良性病变,可不必清扫淋巴结,术后预后良好。

## 参考文献

- McChesney TM. Placental transmogrification of the lung: A unique case with remarkable histopathologic features [J]. Lab Invest, 1979, 40;245-246.
- [2] Hindaria S, Garg A, Dolas A. Giant pulmonary hamartoma with placental transmogrification-a case report [J]. Indian J Thorac Cardio-

- vasc Surg, 2021, 37 ( 6 ); 702-705. DOI; 10. 1007/s12055-021-01207-z.
- [3] Fidler ME, Koomen M, Sebek B, et al. Placental transmogrification of the lung, a histologic variant of giant bullous emphysema. Clinicopathological study of three further cases [J]. Am J Surg Pathol, 1995, 19 (5);563-570. DOI;10.1097/00000478-199505000-00008.
- [4] Cavazza A, Lantuejoul S, Sartori G, et al. Placental transmogrification of the lung: Clinicopathologic, immunohistochemical and molecular study of two cases, with particular emphasis on the interstitial clear cells[J]. Hum Pathol, 2004, 35(4):517-521. DOI:10.1016/j. humpath. 2003. 10.023.
- [5] Xu R, Murray M, Jagirdar J, et al. Placental transmogrification of the lung is a histologic pattern frequently associated with pulmonary fibrochondromatous hamartoma[J]. Arch Pathol Lab Med, 2002, 126(5): 562-566. DOI:10.5858/2002-126-0562-PTOTLI.
- [6] Machuca AJ, Sabariego-Arenas I, Idoate MA. A pulmonary inflammatory chondroid hamartoma with so-called placental transmogrification feature in a pleural location. Pathogenic considerations about this unusual disorder [J]. Arch Bronconeumol, 2022, 58 (4):363. DOI:10. 1016/j. arbres. 2021.09.006.
- [7] Hochhegger B, Camargo S, Camargo J, et al. Placental transmogrification of the lung[J]. Lung, 2015, 193 (5): 855-857. DOI: 10.1007/ s00408-015-9772-0.
- [8] 于晶, 王亮, 伍建林, 等. 周围型肺癌伴薄壁空腔的 CT 表现与征象分析 [J]. 中华放射学杂志, 2015, 49 (2); 99-102. DOI; 10. 3760/cma. j. issn. 1005-1201. 2015. 02. 005.
- [9] Shiraishi J, Akamine T, Kato S, et al. Unexpected histopathological diagnosis of placental transmogrification of the lung after bullectomy for recurrent spontaneous pneumothorax; A case report and literature review[J]. Ann Thorac Cardiovasc Surg, 2022, 28(6):438-443. DOI: 10.5761/atcs. cr. 21-00005.
- [10] Kang MK, Kang DK, Hwang YH, et al. Placental transmogrification of the lung presenting as a consolidative lesion with bronchiectasis [J]. Thorac Cancer, 2019, 10 (7): 1644-1647. DOI: 10. 1111/1759-7714 13066
- [11] Brustle K, Lema S, Komminoth P, et al. Placental transmogrification of the lung presenting as progressive symptomatic bullous emphysema [J]. Thorax,2017,72(3):284-285. DOI:10.1136/thoraxjnl-2016-208914.

(收稿日期:2022-12-05)