

DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202524084

· 鼻-鼻窦疾病专栏 ·

鼻腔浆液黏液腺错构瘤的临床分析

曲喆¹, 王玉芝¹, 秦东瑞², 李红军¹

(1. 聊城市第二人民医院耳鼻咽喉科, 山东聊城 252600; 2. 聊城市第二人民医院病理科, 山东聊城 252600)

摘要: **目的** 通过回顾鼻腔浆液黏液腺错构瘤(SMH)4例患者的临床资料,对该病的临床和病理特点进行分析总结。**方法** 4例患者中,男3例,女1例;年龄23~66岁,平均年龄39.75岁。主要症状是单侧鼻塞及脓涕,3例病变位于钩突,1例病变位于中鼻甲。**结果** 所有患者均行鼻内镜下病变切除术,术后病理诊断均为SMH,表现为黏膜下呈簇状或小叶状增生的浆液黏液腺、导管。免疫组化结果:CK7、CK19为弥漫性阳性,S100、p63、EMA为局灶性阳性。随访6~48个月,均未复发。**结论** 鼻腔SMH临床症状缺乏特异性,病理学表现独特,手术彻底切除病变是有效的治疗手段。

关键词: 鼻腔;浆液黏液腺错构瘤;病理诊断;手术治疗

中图分类号:R739.62

Clinical analysis of nasal cavity seromucinous hamartoma

QU Zhe¹, WANG Yuzhi¹, QIN Dongrui², LI Hongjun¹

(1. Department of Otorhinolaryngology, the Second People's Hospital of Liaocheng, Liaocheng 252600, China; 2. Department of Pathology, the Second People's Hospital of Liaocheng, Liaocheng 252600, China)

Abstract: **Objective** To retrospectively analyze the clinical data of 4 patients with nasal cavity seromucinous hamartoma(SMH), which summarized the clinical and pathological characteristics of SMH. **Methods** There were 4 patients(3 males and 1 female). The four patients ranged from 23 to 66 years old, with an average age of 39.75 years old. The main symptoms of the 4 patients were unilateral nasal congestion and purulent discharge. Three lesions of the patients were located in the uncinat process, and one lesion in the middle turbinate. Pathological changes manifest was clustered or lobular proliferation of mucinous glands and ducts under the mucosa. **Results** All patients underwent endoscopic lesion resection, and the pathological diagnosis was SMH, manifest was clustered or lobular proliferation of mucinous glands and ducts under the mucosa. Immunohistochemical results:CK7 and CK19 are diffuse positive, while S100, p63 and EMA are focal positive. Followed up for 6 to 48 months, with no recurrence. **Conclusions** The clinical symptoms of nasal cavity SMH are lack of specificity, and the pathology of the SMH is unique. Surgical removal of the lesion is an effective treatment method.

Keywords: Nasal cavity; Seromucinous hamartoma; Pathological diagnosis; Surgical treatment

错构瘤是个体胚胎发育过程中,多种组织分化或发育不成熟而形成的良性占位病变。Baillie 和 Batsakis 于 1974 年最早报道了鼻腔浆液黏液腺错构瘤(seromucinous hamartoma, SMH)^[1],它是一种良性腺体增生性疾病。鼻腔 SMH 在临床上属于罕见病例,国内外文献仅报道 40 余例,且国内还没有文献关注 SMH 的免疫组化特点,现报道聊城市第二人民医院收治的 4 例鼻腔 SMH 患者的临床资料,描述其临床病理特征和免疫组化结果,为临床诊治提供

参考。

1 材料和方法

1.1 临床资料

收集 2019 年 6 月—2023 年 10 月收治且经病理确诊的 SMH 患者 4 例,其中男 3 例,女 1 例;年龄 23~66 岁,平均年龄 39.75 岁。4 例患者的主要症状是单侧鼻塞及脓涕,4 例患者均有间歇性头痛、头

沉。3例患者鼻内镜下见单侧钩突息肉样、广基新生物生长伴中鼻道脓性分泌物,1例患者鼻内镜见单侧中鼻甲有根蒂、息肉样、灰白色新生物生长伴总鼻道脓涕。4例患者均行鼻窦CT检查。3例病变位于钩突患者合并上颌窦、额窦、筛窦炎症改变,1例病变位于中鼻甲患者不合并窦腔炎症。具体情况见表1。

1.2 治疗方法

4例患者均行手术治疗,术中彻底切除病变。3例患者病变位于钩突行鼻内镜下单侧鼻腔肿物切除及多鼻窦开放术;1例患者病变位于中鼻甲行鼻内镜下单侧鼻腔肿物切除术,并用双极电凝烧灼中鼻甲肿物根部。

2 结果

4例患者的术后病理均为SMH,组织学上鼻腔SMH表现为呼吸上皮覆盖的息肉样病变,黏膜下呈

簇状或小叶状增生的浆液黏液腺、导管,周围有纤维间质包绕^[1-2]。病例1、4免疫组化结果:CK7、CK19为弥漫性阳性,S100、p63、EMA为局灶性阳性。4例患者手术顺利,无手术并发症。随访6~48个月,4例患者均无复发。

3 典型病例

病例1,男,37岁,因左侧头痛、鼻塞伴眼胀半年入院。入院查体:左侧钩突息肉样、广基新生物伴中鼻道脓涕。术前鼻窦CT检查示左侧中鼻道软组织影伴鼻窦炎(图1A、B)。术前诊断:慢性鼻窦炎伴鼻息肉。行全身麻醉鼻内镜下单侧鼻腔肿物切除及多鼻窦开放术。术后病理诊断:SMH(图1C)。免疫组化结果:CK7、CK19为弥漫性阳性(图1D、E),S100、p63、EMA为局灶性阳性。术后2年随访内镜检查示病变无复发(图1F)。

表1 4例患者的临床资料

临床因素	病例1	病例2	病例3	病例4
年龄(岁)	37	33	66	23
性别	男	男	男	女
基础疾病	无	无	冠心病	无
主诉	左侧头痛、鼻塞、伴眼胀半年	右侧鼻塞伴间歇、脓涕10年	左侧间歇鼻塞、伴脓涕半年	右侧鼻塞伴脓、涕2月余
查体	左侧钩突息肉样、广基新生物伴中鼻道脓涕	右侧钩突息肉样、广基新生物伴中鼻道脓涕	左侧钩突息肉样、广基新生物伴中鼻道脓涕	右侧中鼻甲有根蒂、息肉样新生物伴总鼻道脓涕
术前CT	左侧中鼻道软组织影伴鼻窦炎	右侧中鼻道软组织影伴鼻窦炎	左侧中鼻道软组织影伴鼻窦炎	右侧鼻腔软组织影
术前诊断	慢性鼻窦炎伴息肉	慢性鼻窦炎伴鼻息肉	慢性鼻窦炎伴鼻息肉	鼻腔肿物(右)
免疫学阳性指标	CK7、CK19、S100、p63、EMA	未做	未做	CK7、CK19、S100、p63、EMA
随访时间	2年	4年	3年	6个月
随访结果	无复发	无复发	无复发	无复发

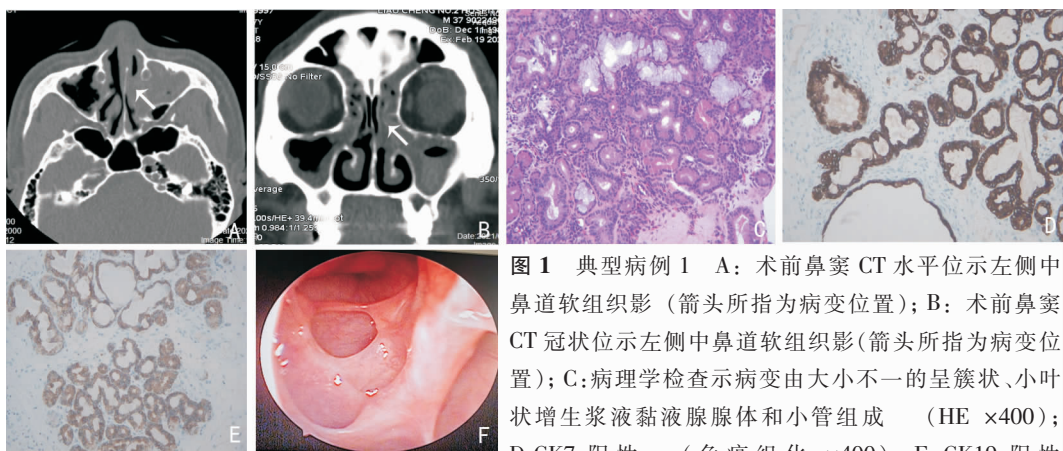


图1 典型病例1 A:术前鼻窦CT水平位示左侧中鼻道软组织影(箭头所指为病变位置);B:术前鼻窦CT冠状位示左侧中鼻道软组织影(箭头所指为病变位置);C:病理学检查示病变由大小不一的呈簇状、小叶状增生浆液黏液腺腺体和小管组成(HE×400);D:CK7阳性(免疫组化×400);E:CK19阳性

(免疫组化×400);F:术后2年鼻内镜复查

4 讨论

根据来源,错构瘤可以分为上皮型、间叶型、上皮和间叶混合型^[3]。发生于鼻腔鼻窦的错构瘤,包括呼吸道上皮腺瘤样错构瘤(respiratory epithelial adenomatoid hamartoma, REAH)、SMH、软骨-骨呼吸上皮错构瘤和鼻软骨间叶错构瘤。其中,REAH和SMH是上皮来源的病变。

SMH是一种罕见的错构瘤,鼻腔内发病部位多变,可发生于鼻中隔、中鼻甲、下鼻甲、钩突,也可发生于鼻咽部、蝶筛隐窝,男女发病率相似,中老年人多见^[4]。病变为富有弹性的息肉样外观,但比息肉的外观更加复杂,可为广基或带蒂,主要临床表现为单侧鼻塞及脓涕,当病变发生位置阻塞窦口引流时,会合并慢性鼻窦炎。在本研究的4例患者中,有3例病变位于钩突,影响了鼻道窦口复合体的引流,合并单侧上颌窦、筛窦、额窦炎症。而发生于中鼻甲的1例病变,未合并窦腔炎症,仅表现为单侧鼻腔肿物及脓涕。该病发病原因不明,有学者认为慢性炎症在疾病的发病过程中起到一定作用^[5]。

鼻腔SMH在CT上的表现为同脑灰质相比的低密度影,骨质无破坏征象;MRI T1WI呈低信号或等信号,T2WI呈不均匀高信号,增强扫描呈不均匀强化^[6]。显微镜下,SMH为被覆呼吸上皮的息肉样肿块,由大小不一呈簇状或小叶状增生的浆液黏液腺腺体和小管组成,腺体和小管为单层立方或扁平上皮,周围有纤维间质包绕,间质内常见淋巴细胞浸润,组织内无背对背生长模式、筛状模式、侵袭性等恶性肿瘤的结构特征^[5]。免疫组织化学特征,CK7、CK9、EMA、HMWK呈阳性,S100阳性,p63在具有外周模式的浆液黏液腺中显示出散在的阳性,肠细胞标志物CK20呈阴性^[4]。在我们的研究中,CK7、CK19为弥漫性阳性,S100、p63、EMA为局灶性阳性,p63表现为局灶性阳性,说明局部存在肌上皮/基底细胞。本研究的免疫组化结果与国外文献报道的结果类似^[4]。

鼻腔SMH需要鉴别的良性病变有鼻息肉、鼻腔REAH。SMH的病理特点是含有很多浆液黏液腺腺体,而鼻息肉内是缺乏此种腺体的,鼻息肉的间质水肿较SMH更为明显。鼻息肉在T2WI中呈明显的高信号,增强后边缘强化明显,内部强化不明显,与鼻腔SMH的MRI表现明显不同。REAH是鼻腔最常见的错构瘤,外观与息肉类似,但较息肉更坚韧粗

糙,最常见的发病部位为嗅裂。显微镜下表现为大量大小不等的圆形、椭圆形腺体,内衬呼吸性纤毛上皮,杂有黏液分泌细胞,细胞层数较多,缺乏浆液黏液腺^[7],而SMH浆液黏液腺腺体及小管是由单层细胞组成,且REAH有基底细胞,SMH不存在或局部存在基底细胞。在本研究病例4的病理中,可见局灶性类REAH样假复层纤毛柱状上皮腺体增生,SMH和REAH可同时存在于同一病变中,此种情况并不少见,在之前的文献中亦有报道^[8]。鼻腔REAH在CT上的特征表现是嗅裂膨胀性增宽,MRI检查也可以提示某些线索,与脑灰质相比,T1WI、T2WI均表现为不均匀等信号,T2WI内部可有“筛网状”略高信号,增强后不均匀强化呈“筛网状”^[9]。上述病理学和影像学的不同有助于鼻腔SMH和鼻息肉、鼻腔REAH之间的鉴别。

鼻腔SMH需要鉴别的恶性病变是鼻腔低级别非肠型腺癌(low grade non intestinal adenocarcinoma, LGNIA),LGNIA被认为是浆液黏液腺来源,并且和SMH有几乎一样的免疫组化表型,其在显微镜下见分化良好的腺腔,腺腔由单层立方或柱状细胞围成,呈乳头状、筛状、背靠背排列,少有间质浸润,核分裂象少见,无坏死,无淋巴管及神经侵犯^[10]。LGNIA腺体的乳头状和背靠背排列模式对区别SMH有重要意义,且LGNIA表现出浸润性外生生长模式,区分这两种病变对于手术方式的选择和是否术后放疗有重要的意义。鼻腔腺癌主要沿黏膜下广泛侵犯,骨组织破坏不明显,MRI T1WI多呈稍低或低信号,T2WI多呈不均匀稍高信号,增强后不均匀明显强化^[10]。在影像学上鼻腔SMH和LGNIA并不能很好地区分。它们之间的鉴别主要依靠病理诊断。

鼻腔SMH是一种良性病变,通过手术彻底切除病变就可以达到治疗目的,文献中仅报道1例复发^[5],对于合并鼻窦炎的病例,需同时行鼻窦开放术。一般认为SMH没有恶变倾向,但Rengifo等^[11]在2021年报道了1例由SMH转化为LGNIA的病例,是首例SMH恶变的病例。鼻腔SMH一般不会侵犯周围组织,但Basiari等^[12]在2023年报道了首例侵犯到眼眶的病例,眶纸板骨质消失,但对眶内肌肉无明显浸润,术后恢复良好。本组4例患者在手术中,因为SMH外观与鼻息肉类似,所以将其当做息肉处理,未做术中快速病理,存在未完全切除病变的风险,在以后的工作中将注意此点,对于单侧鼻腔肿物患者,术前取活检或术中快速病理检查,避免病

变残留的可能,减少术后复发的风险。本组4例患者术后预后良好,均无复发,高分辨率病理图像可为正确识别SMH提供指导。本文通过4例SMH患者的报道,以提高鼻科和病理科医生对该病的认识,减少临床漏诊误诊几率。

参考文献:

[1] Baillie EE, Batsakis JG. Glandular(seromucinous) hamartoma of the nasopharynx[J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 1974,38(5):760-762.

[2] Tong KN, Serra RM, Shih RY, et al. Seromucinous hamartoma of the nasal cavity[J]. Head Neck Pathol, 2019,13(2):239-242.

[3] Thompson L. World Health Organization classification of tumours: Pathology and genetics of head and neck tumours[J]. Ear Nose Throat J, 2006, 85(2):74.

[4] Huang YW, Kuo YJ, Ho CY, et al. Sinonasal seromucinous hamartoma[J]. Eur Arch Otorhinolaryngol, 2018,275(3):743-749.

[5] Weinreb I, Gnepp DR, Laver NM, et al. Seromucinous hamartoma: a clinicopathological study of a sinonasal glandular lesion lacking myoepithelial cells[J]. Histopathology, 2009,54(2):205-213.

[6] 于学民,冯琨,任庆国,等. 鼻腔浆液黏液腺样错构瘤1例[J]. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2022,57(6):743-745.

[7] 于晓峰,顾兆伟,曹志伟. 鼻腔呼吸道上皮腺瘤样错构瘤[J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科, 2015,22(5):249-252.

[8] Khan RA, Chernock RD, Lewis JS. Seromucinous hamartoma of the nasal cavity: a report of two cases and review of the literature[J]. Head Neck Pathol, 2011,5(3):241-247.

[9] 付琳,刘鹏涛,杨本涛,等. 鼻腔嗅裂区呼吸上皮腺瘤样错构瘤的CT和MRI表现[J]. 中华放射学杂志, 2016,50(4):256-259.

[10] 李玲玲,姜彦,葛瑞峰,等. 鼻腔鼻窦低级别非肠型腺癌4例报道及文献复习[J]. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2023,29(5):55-59.

[11] Rengifo DA, Varadarajan VV, Lai J, et al. Transformation from sinonasal seromucinous hamartoma to adenocarcinoma: a case report[J]. ORL J Otorhinolaryngol, 2021,83(6):478-480.

[12] Basiari L, Michali M, Komnos L, et al. Seromucinous hamartoma of the lateral nasal wall with infiltration of the orbit: a rare case report and review of the literature[J]. Case Rep Otolaryngol, 2023:1923015.

(收稿日期:2024-03-07)

本文引用格式:曲喆,王玉芝,秦东瑞,等. 鼻腔浆液黏液腺样错构瘤的临床分析[J]. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2025,31(1):9-12. DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202524084

Cite this article as: QU Zhe, WANG Yuzhi, QIN Dongrui, et al. Clinical analysis of nasal cavity seromucinous hamartoma[J]. Chin J Otorhinolaryngol Skull Base Surg, 2025,31(1):9-12. DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202524084