



· 论 著 ·

肝内胆管腺瘤的超声声像图及临床病理学特征分析

毛 枫^{1,2,3}, 韩 红^{1,2}, 曹佳颖¹, 董 怡¹, 施帅楠¹, 王文平^{1,2}

1. 复旦大学附属中山医院超声科, 上海 200032 ;
2. 上海市影像医学研究所, 上海 200032 ;
3. 复旦大学附属中山医院厦门医院超声科, 福建 厦门 361015

[摘要] 目的: 探讨肝内胆管腺瘤 (intrahepatic bile duct adenoma, BDA) 的超声声像图表现及临床病理学特征。方法: 收集2019年1月—2021年7月复旦大学附属中山医院及复旦大学附属中山医院厦门医院经穿刺活检及手术后病理学检查诊断为BDA的患者6例, 结合临床及病理学表现分析其常规超声和超声造影特点。结果: 6例患者共9个病灶, 所有病灶均位于肝脏包膜下。病灶最大为12 mm × 10 mm, 最小为6 mm × 5 mm。9个病灶中有3个肿块中央出现高回声, 周围是低回声环, 类似“靶环征”, 与病理学表现具有一定的相关性。3个肿块边界清晰, 6个病灶边界欠清或边界不清。彩色多普勒超声均未见明显彩色血流。超声造影显示6个病灶快速整体增强, 3个病灶同步增强。9个病灶动脉期晚期或门脉期减退, 均呈“快进快出”类型。超声诊断良性病变3个, 恶性病变6个, 准确度为33.3%。病理学上可见大量增生的小胆管, 伴广泛慢性炎症细胞浸润, 胆管上皮分化良好, 随着病程的进展, 病变内增生的胆管和浸润的炎症细胞逐渐减少, 纤维组织逐渐增多。结论: BDA的超声图像及临床病理学表现具有一定的特征, 掌握其特点有利于增加对BDA的认识, 提高其诊断准确率。

[关键词] 肝内胆管腺瘤; 超声; 超声造影; 病理

DOI: 10.19732/j.cnki.2096-6210.2022.06.010

中图分类号: R735.7; R445.1 文献标志码: A 文章编号: 2096-6210(2022)06-0612-05

Analysis of ultrasonographic and pathological features of intrahepatic bile duct adenoma MAO Feng^{1,2,3}, HAN Hong^{1,2}, CAO Jiaying¹, DONG Yi^{1,2}, SHI Shuainan¹, WANG Wenping¹ (1. Department of Ultrasound, Zhongshan Hospital, Fudan University, Shanghai 200032, China; 2. Shanghai Institute of Medical Imaging, Shanghai 200032, China; 3. Department of Ultrasound, Xiamen Branch, Zhongshan Hospital, Fudan University, Xiamen 361015, Fujian Province, China)

Correspondence to: WANG Wen ping E-mail: puguang61@126.Com

[Abstract] **Objective:** To investigate the ultrasonography and clinicopathology features of intrahepatic bile duct adenoma (BDA). **Methods:** Six patients with BDA diagnosed by biopsy and surgery pathology in Zhongshan Hospital and Xiamen Branch, Fudan University from January 2019 to July 2021 were analyzed for the characteristics of conventional ultrasound and contrast-enhanced ultrasound (CEUS), and their characteristics were summarized in combination with the clinical and pathological manifestations. **Results:** There were 9 lesions in 6 patients, all of which were located under the liver capsule. The maximum lesion size was 12 mm × 10 mm and the minimum lesion size was 6 mm × 5 mm. In 2 of the 9 lesions, hyper echo appeared in the center, surrounded by low echo ring, similar to the target ring sign, which had a certain correlation with pathology. Three lesions were clearly demarcated, and six lesions were poorly or ill-demarcated. There was no obvious color blood flow in Doppler ultrasound. CEUS showed rapid overall enhancement in six lesions and synchronous enhancement in three lesions. All of the 9 lesions showed rapid entry and rapid exit in the late arterial or portal phase. Three benign lesions and six malignant lesions were diagnosed by ultrasonography, and the accuracy was 33.3%. Pathologically, a large number of proliferative bile ducts can be seen in this disease, accompanied by extensive chronic inflammatory cell infiltration, and the bile duct epithelium is well differentiated. With the progress

基金项目: 上海申康中心重大临床研究项目 (SHDC2020CR1031B); 上海市自然科学基金 (20ZR1452800); 上海市临床重点专科项目 (shslczdzk03501)

通信作者: 王文平 E-mail: puguang61@126.com

of the disease, the proliferative bile ducts and infiltrating inflammatory cells in the lesion gradually decrease, while the fibrous tissue gradually increases. **Conclusion:** Ultrasonography and clinicopathology of BDA have certain characteristics, and it is helpful to understand BDA and improve the diagnostic accuracy.

[**Key words**] Intrahepatic bile duct adenoma; Ultrasound; Contrast-enhanced ultrasound; Pathology

肝内胆管腺瘤 (intrahepatic bile duct adenoma, BDA) 是一种罕见的肝内良性肿瘤, 其起源于肝内胆管上皮。目前研究^[1-2]多以计算机断层成像 (computed tomography, CT) 及磁共振成像 (magnetic resonance imaging, MRI) 表现为主, 且病例数较少, 超声表现鲜有报道。然而近年来, BDA在肝脏占位性病变中时有发生, 且常与其他疾病同时发生, 给临床诊治及外科手术带来了一定的挑战。本文介绍复旦大学附属中山医院及复旦大学附属中山医院厦门医院近年来6例BDA的超声表现, 并结合其他影像学 and 病理学表现, 分析其特征, 以提高对BDA的认识。

1 资料和方法

1.1 研究对象

收集2019年1月—2021年7月经穿刺活检及手术后病理学检查证实的BDA患者6例, 患者均行超声及超声造影检查。其中男性5例, 女性1例, 年龄25~78岁, 平均年龄 (45.8 ± 11.9) 岁; 单发4例, 多发2例, 共9个病灶; 5例乙型肝炎表面抗原为阳性, 1例为阴性; 甲胎蛋白均未见升高; 5例经手术后病理学检查证实, 1例经穿刺活检证实。

1.2 仪器与方法

1.2.1 仪器

采用意大利Esaote公司的MyLab Twice超声诊断仪, 探头选用CA541, 频率为1.5~5.0 MHz; 采用日本Hitachi公司的ARIETTA 70超声诊断仪, 探头选用C251, 频率为1~5 MHz, 均具有超声造影谐波成像技术。造影剂选用意大利Bracco公司生产的SonoVue (声诺维), 注射前用5 mL的生理盐水稀释, 充分摇匀后振荡配制成混悬液。造影时用团注法快速推入肘正中静脉2.0 mL, 然后用5 mL生理盐水冲管。每次造影持续观察3~5 min, 同时数字录像记录造影全过程。

1.2.2 方法

常规超声仔细扫查肝脏, 发现病灶, 记录其位置、大小、形态及回声。然后对病灶或可疑区域进行超声造影检查, 切换至造影模式, 机械指数设为0.06~0.10, 观察动脉期、门脉期及延迟期病灶的增强时间、达峰时间、呈等回声时间及呈低回声时间, 对病灶超声表现进行描述, 并进行定位、定性及鉴别诊断, 总结其增强类型, 高回声表示病灶的增强强度高于周围肝实质, 等回声表示病灶增强强度等于周围肝实质, 低回声表示病灶的增强强度低于周围的肝实质。病灶动脉期快速增强呈高回声, 门脉期或延迟期减退呈低回声定义为“快进快出”。病灶动脉期与周围组织同步增强呈等回声, 门脉期或延迟期减退呈低回声的定义为“同进快出”。检查结束后, 所有患者均由2名高年资具有腹部超声及超声造影诊断经验的医师进行资料回放分析确认, 并统一分析作出诊断。

1.3 统计学处理

采用SPSS 17.0软件进行统计学分析。患者年龄、病灶大小、超声造影时间等计量资料以 $\bar{x} \pm s$ 表示。

2 结果

2.1 超声表现

6例患者共9个病灶均位于肝脏包膜下, 其中肝右叶5个, 肝左叶4个。病灶最大为12 mm × 10 mm, 最小为6 mm × 5 mm。常规超声声像图表现为低回声4个、高回声5个, 其中3个肿块周边可见低回声环, 类似“靶环征” (图1); 肿块边界欠清6个, 边界尚清3个。9个病灶彩色多普勒超声均未见肿块内有彩色血流 (表1)。病灶以高回声为主, 占55.6% (5/9), 低回声占44.4% (4/9); 肿块以边界欠清为主, 占66.7% (6/9), 边界清晰占33.3% (3/9)。

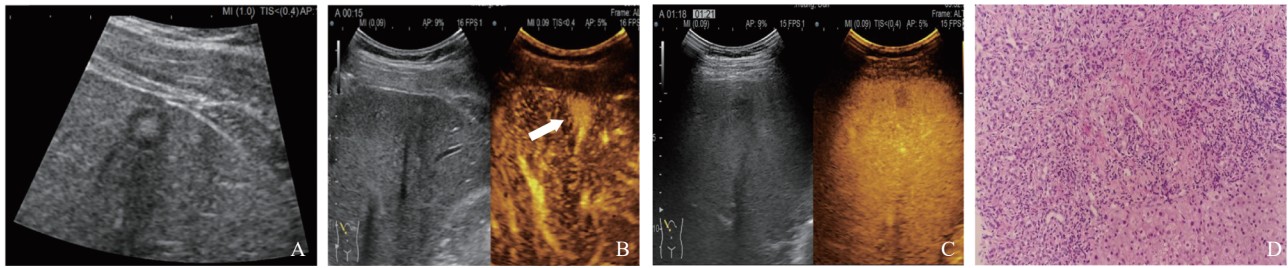


图1 典型BDA病例1超声、超声造影表现及病理学表现

患者, 男性, 35岁, 乙肝阳性随访, 增强MRI发现肝右叶包膜下占位3年。A: 常规超声可见肝右叶包膜下一低回声占位, 大小约9 mm × 8 mm, 肿块中央高回声, 周边低回声环, 边界清晰, 呈“靶环征”; B: 注射造影剂后, 显示病灶动脉期明显强化(箭头所示), 边界清晰; C: 该病灶门脉期减退呈低回声改变, 边界仍清晰, 病灶符合“快进快出”的超声增强模式; D: 患者行穿刺活检(H-E染色, ×200), 穿刺组织中见小胆管增生, 间质纤维组织增生伴玻璃样变, 少量炎细胞浸润, 胆管形态尚好, 考虑为BDA。

表1 6例BDA的临床资料

患者	性别	年龄/岁	乙肝	病灶数	大小	位置	回声	边界	内部血流
1	男性	50	+	1	12 mm × 8 mm	肝左外叶包膜下	高回声	欠清	无
2	男性	39	+	3	12 mm × 10 mm, 10 mm × 9 mm, 9 mm × 7 mm	左内叶, 右叶, 右叶	低回声, 低回声, 低回声	欠清	无
3	男性	47	+	1	8 mm × 7 mm	左外叶包膜下	高回声	欠清	无
4	女性	43	-	1	9 mm × 7 mm	左内叶包膜下	低回声	尚清	无
5	男性	35	+	2	9 mm × 8 mm, 6 mm × 5 mm	右后叶包膜下	高回声, 高回声	尚清	无
6	男性	50	+	1	9 mm × 8 mm	右前叶包膜下	高回声	欠清	无

+: 阳性; -: 阴性。

2.2 超声造影时间及类型

超声造影显示所有病灶开始增强时间为 (15.3 ± 2.1) s, 达峰时间为 (19.2 ± 0.6) s, 减退呈低回声时间为 (35.7 ± 17.8) s。超声造影6个病灶快速增强, 3个病灶同步增强。9个病灶3例动脉期晚期减退, 6个门脉期减退(表2, 图1、2)。9个病灶达峰时均表现为整体均匀性增强。9个病灶中, 符合“快进快出”类型6个, 占66.7% (6/9), “同进快出”类型3个, 占33.3% (3/9)。

2.3 常规超声及超声造影比较

常规超声及超声造影诊断出良性病变3个病灶, 恶性病变6个, 诊断出良恶性的准确度仅为33.3% (3/9)。

表2 6例BDA的超声造影表现

患者	增强强度	开始增强时间/s	达峰时间/s	减退时间/s	增强类型	增强方式
1	等增强	15	20	32	同进快出	整体均匀增强
2	高增强	18	20	55	快进快出	整体均匀增强
3	等增强	15	20	35	同进快出	整体均匀增强
4	高增强	12	18	45	快进快出	整体均匀增强
5	高增强	15	20	30	快进快出	整体均匀增强
6	等增强	15	20	30	同进快出	整体均匀增强

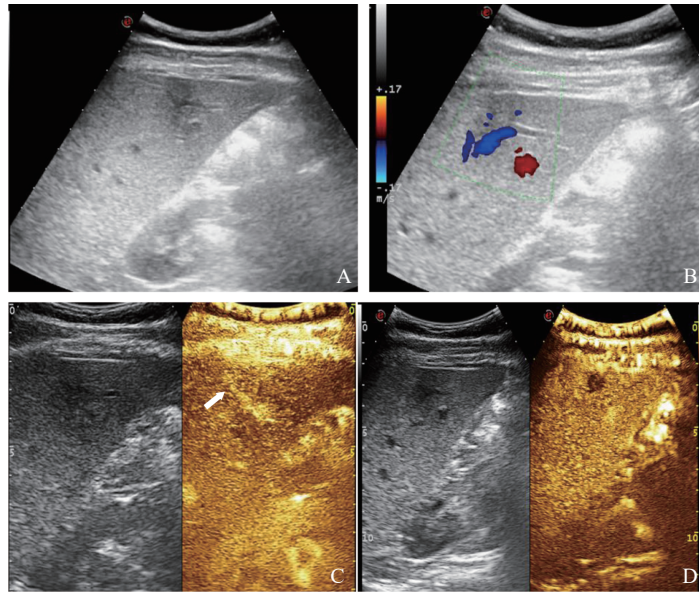


图2 典型BDA病例2的二维超声及超声造影表现

患者，男性，67岁，乙肝40年，发现肝右叶下角包膜下占位1个月。A：该病灶呈稍低回声，边界欠清，大小约9 mm×8 mm；B：彩色多普勒超声显示肿块周边点状彩色血流，内部无明显彩色血流；C：注射造影剂后，显示该病灶动脉期与肝组织同步增强（箭头所示），此时边界仍欠清晰；D：该病灶在动脉期晚期及门脉期呈低回声改变，此时边界显示清晰，病灶符合“快进快出”超声增强类型。

3 讨 论

BDA是肝脏内一种较为罕见的良性肿瘤，占肝内原发性肿瘤的1.3%，且大多研究为个案报道^[3]。病灶体积小，且部分与肝脏其他病灶伴随发生。患者平均年龄55岁，83%的患者20~70岁，男女性发病率无明显差异，本研究中男性5例，女性1例。临床表现为肝被膜下的孤立性结节，偶见于肝叶深部，多发结节少见，常与其他肝内疾病并存，体积较小。本研究单发4例，多发2例。文献^[4]报道，58%的患者BDA见于肝右叶，左叶为33%，两叶同时发生占9%，与本组资料类似。肿物直径0.1~2.0 cm，约90%的肿块直径小于1 cm。BDA是一种增生性疾病，可能由肝内胆管上皮的受损引起。BDA以往采用的名字较多，较为混淆，常称为良性胆管瘤、胆管瘤或胆管错构瘤等，最后将其统一命名为BDA^[5]。BDA的主要病理形态学特点^[6-7]：
① 病变较小，直径1~20 mm，平均5.8 mm。病灶界限清晰，多呈灰白色、无包膜。② 病变常位于肝包膜下，常为单发性结节，少数为多发性结

节。③ 病变内可见大量增生的小胆管，伴多量纤维组织增生及慢性炎性细胞浸润；增生的小胆管上皮细胞分化良好，有明显的异型性。④ 随着病程的进展，病变内增生的胆管和浸润的炎性细胞逐渐减少，而纤维组织逐渐增多。病变至晚期，几乎完全由透明变性的胶原纤维所取代，仅见少量胆管成分，偶可见钙化。⑤ 病变内无扩张的胆管，管腔内无胆汁。⑥ 免疫组织化学检测中Ki-67和p53阴性，CK19、CK7和CD56阳性。胆管腺瘤属良性病变，其治疗方法可采用手术切除或不做任何处理，患者预后良好^[8-9]。

典型的BDA常规超声一般表现为相对较小的靠近肝脏表面的肿块，肿块绝大部分小于10 mm，本组资料有77.8%（7/9）的肿块小于10 mm，肿块以高回声为主，部分肿块中央为高回声，周边稍低回声，类似“靶环征”（图1）。

彩色多普勒超声均未测及明显彩色血流。超声造影表现主要为“快进快出”或“同进快出”两种增强方式，动脉期可增强可同步；病灶减退时间较快，均在60 s内减退，减退后边界清晰。由于BDA病理学显示肿块伴有较多的炎性细胞浸润，而炎症在超声造影上常表现为“快进快出”，因此部分病灶呈现“快进快出”，同时当肿块内伴有大大

量的纤维组织增生时,因纤维组织血供较少,超声显示为同步增强,因此部分病灶呈现“同进快出”。本组资料中,病灶“快进快出”6个,“同进快出”3个,与病理学检查结果基本一致;另外,本组资料中有3个病灶中央可见高回声,周边呈低回声,类似“靶环征”,病理学检查结果显示,部分病灶随着病程进展,病灶中心逐渐被纤维化所代替,因此超声呈现高回声,同时周围残留少量胆管细胞及炎性细胞浸润,超声显示为低回声,呈现“靶环征”,具有一定的特征性。

BDA的CT大多表现为近肝包膜下的稍低结节影^[10],病灶较小,多为1~20 mm。动态增强扫描动脉期明显强化,门脉期呈等密度,呈现延时、边缘显著强化趋势,部分肿块边缘出现斑片状的炎性充血带比较具有特征性。在MRI中表现为长T1长T2信号^[11-12],动脉期表现为富血供肿瘤,肝胆特异性呈低信号改变。

BDA诊断及鉴别诊断:①胆管错构瘤,为肝多发小结节,直径为1~10 mm,一般为弥散多发且不均匀地分布于肝实质内,可伴有散在点状强回声及小无回声,影像学及临床特征可与BDA相鉴别。病理学上错构瘤组织学显示为圆形或不规则形的病灶,多围绕肝汇管区分布,其内为大小不一、不规则扩张的胆管。胆管腔内可见胆汁,间质由增生的纤维组织构成,淋巴细胞浸润少且散在,与BDA明显不同。②肝癌,肝癌可位于肝脏任何部位,常乙型肝炎病毒表面标志物阳性,甲胎蛋白升高,且肿块有增大趋势,而BDA一般位于肝脏表面,较小,患者常常偶然发现,一般情况良好。BDA彩色多普勒超声常无明显血供,肿块无明显增大趋势,造影部分病灶边界不清,亦可出现“同进快出”现象,与原发肝癌稍有不同。具体鉴别有赖于穿刺活检或手术后病理学检查。③肝脏硬化结节,在本组资料中,有2例诊断为硬化结节,主要是病灶边界欠清(图2),无明显包膜,造影与典型肝细胞性肝癌具有一定的差别,因此考虑硬化结节,但病灶门脉期及延迟器减退,与硬化结节不完全相同。④肝脏炎性病变,本组有1例诊断为炎性病变,主要是由于患者一般情况好,随访几年无明显变化,超声造影显示“快进快出”,与部分炎

性病变相类似,但此例患者病灶形态规则,边界清晰,中央有高回声,与炎症不完全相符。

总之,BDA是一种少见的肝脏良性肿瘤,均位于肝包膜下,体积较小,常小于10 mm,超声表现常以高回声居多,可出现“靶环征”,部分边界清晰,部分边界不清晰,超声造影表现为“快进快出”类型,动脉期以高增强或同步增强为主,常常因体检或伴随其他疾病偶然发现,易误诊,但其临床、影像学及病理学表现具有一定的特征,掌握其特点有助于提高影像科医师对该病的认识,提高诊断准确度,必要时可进行穿刺活检,避免不必要的手术。

[参 考 文 献]

- [1] 刘光俊,杨新官,龙梅,等.肝内胆管腺瘤的CT、MRI表现特征(附2例报告并文献复习)[J].临床放射学杂志,2017,36(12):1903-1906.
- [2] CHEN L, XU M Y, CHEN F. Bile duct adenoma: a case report and literature review [J]. World J Surg Oncol, 2014, 12: 125.
- [3] CHUY J A, GARG I, GRAHAM R P, et al. Imaging features of bile duct adenoma: case series and review of literature [J]. Diagn Interv Radiol, 2018, 24(5): 249-254.
- [4] WEI J G, ZHANG D M, YANG J F, et al. Intrahepatic bile duct adenoma (peribiliary gland hamartoma): a case report and review of literature [J]. Int J Clin Exp Pathol, 2015, 8(5): 5908-5913.
- [5] TATSUMI R, ICHIHARA S, SUII H, et al. Bile duct adenoma: Imaging features and radiologic-pathologic correlation [J]. Jpn J Radiol, 2020, 38(6): 561-571.
- [6] 李剑,左敏,彭树松,等.肝内胆管腺瘤临床病理观察[J].诊断病理学杂志,2011,18(4):272-275.
- [7] 张丽华,吕翔,周强,周祀侨.肝内胆管腺瘤临床病理特点[J].中华肝胆外科杂志,2002,8(8):512.
- [8] 胡文超,陈雀芦,敖利,等.影像学对肝内胆管腺瘤的临床价值[J].肝胆胰外科杂志,2014,26(4):297-300.
- [9] TANG M M, LI Y, LIN Z, et al. Hepatic nodules with arterial phase hyperenhancement and washout on enhanced computed tomography/magnetic resonance imaging: how to avoid pitfalls [J]. Abdom Radiol (NY), 2020, 45(11): 3730-3742.
- [10] KOGA F, TANAKA H, TAKAMATSU S, et al. A case of very large intrahepatic bile duct adenoma followed for 7 years [J]. World J Clin Oncol, 2012, 3(4): 63-66.
- [11] PUJALS A, ZAFRANI E S, CALDERARO J. Bile duct adenoma should not be designated as a reactive process [J]. Pathol Int, 2015, 65(6): 338.
- [12] LIANG W, XU S. Magnetic resonance imaging findings of intrahepatic bile duct adenoma: a report of 4 cases [J]. J Comput Assist Tomogr, 2015, 39(5): 747-751.

(收稿日期:2022-03-30 修回日期:2022-06-25)