

胆囊黑色素瘤并出血1例影像征象分析并文献复习

邹 婧

山东大学附属威海市立医院影像科, 山东 威海

收稿日期: 2024年9月9日; 录用日期: 2024年10月2日; 发布日期: 2024年10月11日

摘 要

目的: 该文旨在探讨影像表现为胆囊内高密度出血块样的原发性胆囊黑色素瘤患者的临床表现、鉴别诊断及诊治要点。方法: 对山东大学附属威海市立医院收治的1例原发性胆囊黑色素瘤的患者进行回顾性分析并针对相关文献进行复习归纳。结果: 原发性胆囊黑色素瘤是胆囊恶性肿瘤的一种特殊类型, 其发病率较低, 常常伴有出血坏死, 密度极不均匀, 是否有强化难以明确, 容易误诊为胆囊炎或胆囊癌伴出血。结论: 胆囊黑色素瘤伴大量出血的病变缺乏特异性临床表现, 影像学特征的总结归纳对其鉴别诊断有重要意义, 因其为高度恶性程度的肿瘤, 手术为首选治疗方法, 最终确诊要依靠手术探查及术后病理结果及免疫组化验证、确诊。

关键词

胆囊, 黑色素瘤, 影像学征象, 诊断, 鉴别诊断

A Case Analysis of Imaging Manifestations of Gallbladder Melanoma with Hemorrhage and Literature Review

Jing Zou

Department of Imaging, Weihai Municipal Hospital, Cheeloo College of Medicine, Shandong University, Weihai Shandong

Received: Sep. 9th, 2024; accepted: Oct. 2nd, 2024; published: Oct. 11th, 2024

Abstract

Objective: This article aims to explore the clinical manifestations, differential diagnosis, and key

points of diagnosis and treatment for patients with primary gallbladder melanoma presenting as high-density hemorrhagic masses in imaging. Method: A retrospective analysis was conducted on a case of primary gallbladder melanoma treated at Weihai Municipal Hospital Affiliated with Shandong University, and a review of relevant literature was performed. Results: Primary gallbladder melanoma is a special type of malignant tumor in the gallbladder with a low incidence rate, often accompanied by hemorrhagic necrosis, extremely uneven density, and uncertain enhancement, which can be easily misdiagnosed as cholecystitis or gallbladder cancer with bleeding. Conclusion: The lesions of gallbladder melanoma with massive hemorrhage lack specific clinical manifestations, and the summary of imaging characteristics is of great significance for its differential diagnosis. Because it is a highly malignant tumor, surgery is the preferred treatment method, and the final diagnosis relies on surgical exploration and postoperative pathological results as well as immunohistochemical verification and confirmation.

Keywords

Gallbladder, Melanoma, Imaging Findings, Diagnosis, Differential Diagnosis

Copyright © 2024 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 引言

原发性胆囊恶性黑色素瘤在临床发病率上极为罕见，至今国内外文献相关报道记录甚少，查阅近 30 年的相关文献资料，关于胆囊黑色素瘤的记载至今不超过 50 例[1]-[13]。原发性胆囊黑色素瘤是一种生物学行为上恶性程度非常高的肿瘤。因为该病发病率极低，术前绝大多数病例会被误诊，可能被诊断为胆囊炎、胆囊结石、胆囊癌或胆囊内血肿形成等[2]。本文详细介绍了 1 例术前以“化脓性胆囊炎并出血可能”收入住院的患者，术后病理诊断为“原发性胆囊恶性黑色素瘤”，该病例有完整的术前影像资料，并结合相关文献复习，探讨该病临床特征、影像学征象特点、鉴别诊断和预后，从而提高该病术前诊断水平及医务工作者对该病的整体认识水平。

2. 病例

基本情况：女，61 岁；主诉：反复右上腹痛 3 个月，再次腹痛 1 天；疼痛特点：腹部持续性钝痛，无放射痛，可忍受，无明显加重或缓解因素；诊疗经过：当地医院就诊，行 B 超检查考虑“急性化脓性胆囊炎”，行上腹部 CT 平扫(图 1(a)~(b))及 CT 增强检查(图 2~图 4)，图 1(a)示胆囊腔内见不规则团片状略高密度影，其内密度不均匀，局部参考 CT 值如图 1(b)所示；CT 增强扫描动脉期(图 2(a))示胆囊腔内局部见不规则高密度影，局部似可见较明显强化(局部参考 CT 值升高大于 20 HU)，局部可见强化前后 CT 值变化不明显，局部参考 CT 值如图 2(b)所示；CT 增强门脉期(图 3(a)~(b))、延迟期(图 4(a)~(b))示局部强化区域强化程度明显减低，说明该病变部分区域强化方式呈“快进快出”型。根据外院 CT 结果，考虑“胆囊占位”，抗菌药物治疗，效果可，半月后腹痛继续反复发作，遂来我院就诊；于我院行上腹部 MR 平扫检查(图 5)，MRI 平扫(图 5(a)~(f))示胆囊体积增大，胆囊腔内见不规则形的团片状 T1WI 高、T2WI 等高信号影，其内信号不均匀，最大截面大小约 7.4 cm × 2.6 cm × 3.8 cm，病灶局部可见 DWI 略高(图 5(e))、ADC 低信号影(图 5(f))。患者在全麻下行胆囊切除术 + 腹膜后肿物切除术。术中探查胆囊与周围组织粘连，胆囊壁肿胀、水肿明显，难以行腹腔镜游离，改为开腹手术。沿胆囊床的右侧旁，完整游离胆囊壁，游离胆囊三角，夹用切断胆囊动脉与胆囊管。可见肝下腹膜后有直径约 1.5 cm 肿块突向腹腔，打

开后腹膜，见肿块位于右肾上极上方，与肝脏、右肾无粘连。完整切除肿块。术后予吸氧、心电监测、抗菌药物预防感染，术后注意大出血、胆漏、胆管狭窄梗阻、腹腔脓肿、切口感染等。大体病理检查示胆囊内息肉样肿物一个，大小：6.0 cm × 4.5 cm × 4.0 cm，切面暗红色，质软，粘膜面呈灰红色。镜检：瘤细胞排列成巢状或条索状；瘤细胞较大，呈多边形或梭形；细胞核较大。免疫组化结果：S-100、HMB45 和 Melan A (+)，LCA、CD20、CD3 均为(-)。病理诊断：胆囊恶性黑色素瘤伴出血坏死。

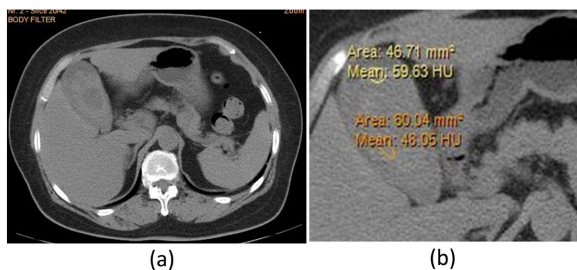


Figure 1. Unenhanced CT images of the upper abdomen and local reference CT values
图 1. 上腹部 CT 平扫图像及局部参考 CT 值



Figure 2. CT enhanced scan arterial phase images and local reference CT values
图 2. CT 增强扫描动脉期图像及局部参考 CT 值

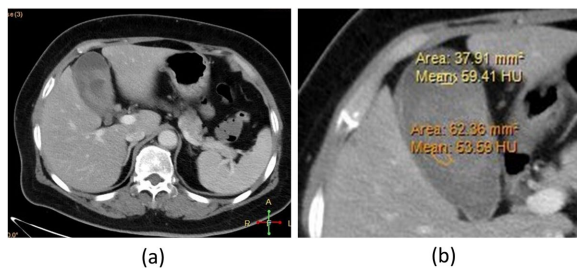


Figure 3. CT enhanced scan portal venous phase images and local reference CT value
图 3. CT 增强扫描门脉期图像及局部参考 CT 值

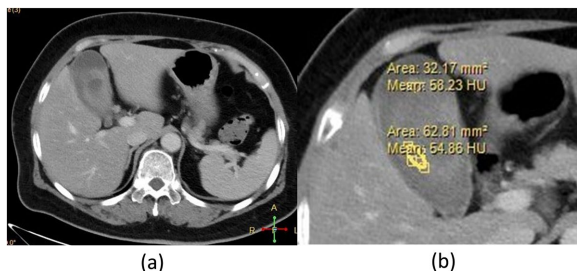


Figure 4. CT enhanced scan delayed phase images and local reference CT value
图 4. CT 增强扫描延迟期图像及局部参考 CT 值

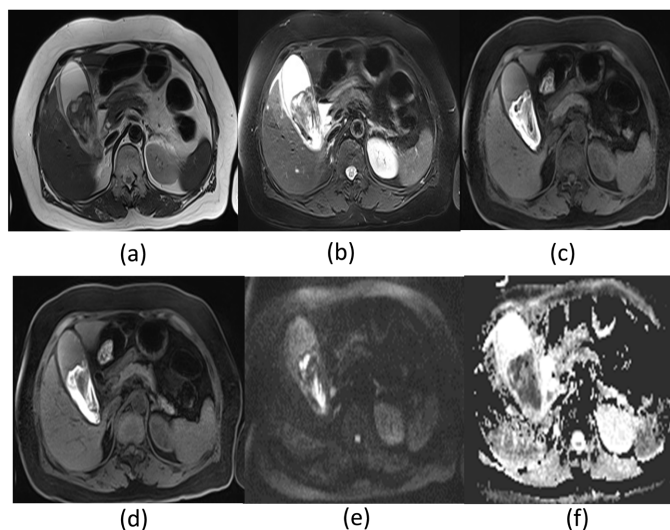


Figure 5. Unenhanced MRI images of the upper abdomen
图 5. 上腹部 MR 平扫图像

3. 讨论

恶性黑色素瘤是由神经脊黑色素细胞恶变产生的一种极少见肿瘤[3]。恶性黑色素瘤多为来源于皮肤或粘膜的神经外胚层，黑色素瘤恶性程度高、侵袭性强，易通过淋巴和血行转移，临床上黑色素瘤原发于胆囊者极为罕见[4]，因此该病在术前得以正确诊断，难度很大。

通过该病例及复习相关文献[2] [5]-[10]，总结该病的影像学特点如下：(1) 胆囊黑色素瘤 CT 平扫时多表现为不均匀略高密度影，其内密度不均匀往往代表着病变内的部分区域出血坏死，这也间接表明了该病变生长速度快、侵袭性强，有很高的恶性程度；(2) CT 增强可以发现在略高密度的实性肿块区域，增强扫描动脉期多呈非常明显或较明显的强化，平均 CT 值多升高 20 HU 以上，门脉期、延迟期实性部分强化程度显著快速下降，强化方式呈“快进快出”型，时间-CT 值强度曲线多呈流出型，分析这种强化方式可能源于肿瘤间质血管非常丰富，这也符合恶性肿瘤的一般强化特点；(3) 磁共振检查因该肿瘤成分的特殊性，也表现出一些特有的征象：黑色素瘤通常富含黑色素细胞，其为顺磁性物质，可呈特征性的 T1WI 高、T2WI 低信号，因此在出现该种特征性的信号改变时，可提示黑色素瘤的可能性；但是现实临床工作中，因该肿瘤常伴有显著的出血坏死，肿瘤内信号极不均匀，难以分辨是出血信号还是黑色素信号，所以很大几率难以通过肉眼下的磁共振图像判断肿瘤内是否含有黑色素成分；然而我们可以通过局部信号值的测量，或者通过时间 - 信号强度曲线(TIC 曲线)来判断 T1WI 高信号区域是否有强化及强化方式(因为出血信号区大多是无强化的)；(4) 肿瘤的边界：虽然胆囊黑色素瘤通常是边界清楚的孤立性肿块，但因为其高度的恶性程度，早期即可发生直接浸润或淋巴结转移，着重观察病变周围组织器官是否侵犯，或远处腹腔内及腹膜后是否有信号及强化特点一致软组织肿块，对于病变的早期正确定性诊断也是至关重要的。对于胆囊的疾病，传统意义上多认为 B 超是首先的检查手段[12]，不过在胆囊黑色素瘤的诊断中，CT 及 MR 检查无疑可以提供更多的定性诊断信息，所以是不容忽略的重要检查手段，我们应该在日后的工作中多加应用。

该病的治疗目前主要还是以手术切除为主[14]，术后化疗会有一定效果，通常将其作为手术后综合治疗的手段；该肿瘤对放疗多不敏感[14]，具体的临床疗效指标和数据需要根据个体病例和治疗反应来评估，而目前没有统一的统计数据[15]。临床上一般仅将放疗作为手术辅助治疗手段，或晚期明显周围器官侵犯

粘连或明显多处转移、难以实施手术的患者姑息治疗手段, 该病整体预后不佳, 有相关报道[12] [16] [17], 该病患者术后五年生存率较低。

综上所述可以得出结论: 胆囊黑色素瘤术前诊断困难, 临床上术前多被误诊为胆囊炎、胆囊癌合并出血等, 由于这是一种极为罕见的疾病, 具体的误诊率数据在现有的文献中并未明确提及。在实际临床工作中, 提高对这种罕见疾病的认知, 结合影像学特征和临床表现, 以及必要时的组织病理学检查, 是减少误诊的关键。对于疑似病例, 应考虑进行更全面的检查和多学科会诊, 以提高诊断的准确性[2]。因为该病早期即可合并出血坏死, 掩盖了该肿瘤特征性黑色素成分所表现出的影像特点, 加之极低的发病率, 术前正确诊断胆囊黑色素瘤极为困难, 目前仍然主要依赖术后病理及免疫组化的金标准依据。

声 明

该病例报道已获得病人的知情同意。

参 考 文 献

- [1] CSCO 黑色素瘤专家委员会. 中国黑色素瘤诊治指南(2015 版) [M]. 北京: 人民卫生出版社, 2015: 17-18.
- [2] 陈善鹏, 王智祥, 张小弟, 等. 胆囊原发性恶性黑色素瘤 1 例报告[J]. 临床肝胆病杂志, 2017, 33(9): 1782-1783.
- [3] 纪志英, 韩景娟, 等. 胆囊黑色素瘤一例[J]. 中华普通外科杂志, 2019, 34(8): 730.
- [4] Dong, X.D., DeMatos, P., Prieto, V.G. and Seigler, H.F. (1999) Melanoma of the Gallbladder: A Review of Cases Seen at Duke University Medical Center. *Cancer*, **85**, 32-39. [https://doi.org/10.1002/\(sici\)1097-0142\(19990101\)85:1<32::aid-cncr5>3.0.co;2-z](https://doi.org/10.1002/(sici)1097-0142(19990101)85:1<32::aid-cncr5>3.0.co;2-z)
- [5] 胡小安, 戴瑜珍, 喻朝霞, 等. 胆囊原发性恶性黑色素瘤 1 例及文献复习[J]. 临床与实验病理学杂志, 2005, 21(4): 465-468.
- [6] Higgins, C.M. and Strutton, G.M. (1995) Malignant Melanoma of the Gall Bladder—Does Primary Melanoma Exist? *Pathology*, **27**, 312-314. <https://doi.org/10.1080/00313029500169203>
- [7] Velez, A.F., Penetrante, R.B., Spellman, J.E., et al. (1995) Malignant Melanoma of the Gallbladder: Report of a Case and Review of the Literature. *The American Surgeon*, **61**, 1095-1098.
- [8] 陆孝禹, 堪福中. 胆囊原发性恶性黑色素瘤一例[J]. 中华病理学杂志, 1998, 27(6): 475.
- [9] Ricci, R., Maggiano, N., Martini, M., Mulé, A.M. Pierconti, F., Capelli, A. and Larocca, L.M. (2001) Primary Malignant Melanoma of the Gallbladder in Dysplastic Naevus Syndrome. *Virchows Archiv*, **438**, 159-165. <https://doi.org/10.1007/s004280000336>
- [10] Heath, D.I. and Womack, C. (1988) Primary Malignant Melanoma of the Gall Bladder. *Journal of Clinical Pathology*, **41**, 1073-1077. <https://doi.org/10.1136/jcp.41.10.1073>
- [11] Borja, S.R., Meyer, W.R. and Cahill, J.P. (1984) Malignant Melanoma of the Gallbladder. Report of a Case. *Cancer*, **54**, 929-931. [https://doi.org/10.1002/1097-0142\(19840901\)54:5<929::aid-cncr2820540530>3.0.co;2-7](https://doi.org/10.1002/1097-0142(19840901)54:5<929::aid-cncr2820540530>3.0.co;2-7)
- [12] Peison, B. and Rabin, L. (1976) Malignant Melanoma of the Gallbladder. Report of Three Cases and Review of the Literature. *Cancer*, **37**, 2448-2454. [https://doi.org/10.1002/1097-0142\(197605\)37:5<2448::aid-cncr2820370538>3.0.co;2-q](https://doi.org/10.1002/1097-0142(197605)37:5<2448::aid-cncr2820370538>3.0.co;2-q)
- [13] 田蓉, 李巍, 于继云. 4-1BB 体外刺激的 T 淋巴细胞抑制小鼠黑色素瘤的作用[J]. 第四军医大学学报, 2007, 28(5): 456-457.
- [14] Ross, C.L., Kaushik, S., Valdes-Rodriguez, R. and Anvekar, R. (2018) MicroRNAs in Cutaneous Melanoma: Role as Diagnostic and Prognostic Biomarkers. *Journal of Cellular Physiology*, **233**, 5133-5141. <https://doi.org/10.1002/jcp.26395>
- [15] 毕忠君, 朱永村, 葛文敏. 胆囊原发性恶性黑色素瘤一例并文献复习[J]. 中华肝胆外科杂志, 2017, 23(11): 749-749, 781.
- [16] Dong, X.D., DeMatos, P., Prieto, V.G. and Seigler, H.F. (1999) Melanoma of the Gallbladder. *Cancer*, **85**, 32-39. [https://doi.org/10.1002/\(sici\)1097-0142\(19990101\)85:1<32::aid-cncr5>3.3.co;2-q](https://doi.org/10.1002/(sici)1097-0142(19990101)85:1<32::aid-cncr5>3.3.co;2-q)
- [17] Hatanaka, N., Miyata, M., Kamiike, W., Okumura, K., Hashimoto, T., Yamaguchi, T., et al. (1993) Radical Resection of Primary Malignant Melanoma of the Gallbladder with Multiple Metastases: Report of a Case. *Surgery Today*, **23**, 1023-1026. <https://doi.org/10.1007/bf00308983>