

论著·临床研究

doi:10.3969/j.issn.1671-8348.2020.14.029

网络首发 [https://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1097.R.20200428.1443.012.html\(2020-04-28\)](https://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1097.R.20200428.1443.012.html(2020-04-28))

以骨髓增殖性肿瘤为首发表现的 T 淋巴母细胞淋巴瘤合并急性髓系白血病 1 例并文献复习

陈枫煜,裴强,王启,姚翔媚[△]

(云南省第一人民医院血液科,昆明 650032)

[摘要] **目的** 探讨以骨髓增殖性肿瘤(MPN)为首发表现的 T 淋巴母细胞淋巴瘤(T-LBL)合并急性髓系白血病(AML)的诊断和治疗。**方法** 分析 1 例以 MPN 为首发表现的 T-LBL 患者合并 AML 的诊治过程,包括病史及入院检查、诊断思路、病理及细胞遗传学检测、治疗及疗效等资料,并进行相关文献复习。**结果** 该患者初诊考虑为 MPN,经淋巴结活检确诊为 T-LBL,经联合化疗获得部分疗效,后合并 AML。**结论** T-LBL 的临床表现可多种多样,病理诊断仍是淋巴瘤诊断的金标准,需全面分析临床表现,予以正确的诊断与治疗,合并 AML 者罕见,预后差。

[关键词] 骨髓增殖性肿瘤;淋巴母细胞淋巴瘤;急性髓系白血病;嗜酸性粒细胞增多;8p11 骨髓增生综合征

[中图法分类号] R551 **[文献标识码]** A **[文章编号]** 1671-8348(2020)14-2373-04

Myeloproliferative neoplasm as the first manifestation in T-lymphoblastic lymphoma with progression to acute myelocytic leukemia: a case report and literature review

CHEN Fengyu, PEI Qiang, WANG Qi, YAO Xiangmei[△]

(Department of Hematology, the First People's Hospital of Yunnan Province, Kunming, Yunnan 650032, China)

[Abstract] **Objective** To explore the diagnosis and treatment of T-lymphoblastic lymphoma (T-LBL) with progression to acute myelocytic leukemia (AML) firstly manifested by myeloproliferative neoplasm (MPN). **Methods** The processes of diagnosis and treatment of a T-LBL patient with progression to AML firstly manifested by MPN, including medical history and admission examination, diagnosis ideas, pathological and cytogenetic detections, and treatment and its outcomes, were analyzed. The related literatures were reviewed, as well. **Results** This patient was initially considered as MPN, and was finally diagnosed as T-LBL by lymph node biopsy. After combined chemotherapy, this patient required partially remission. As a result, the patient underwent subsequent AML. **Conclusion** There are varied clinical manifestations in T-LBL. The pathological diagnosis is still the gold standard for the diagnosis of lymphoma. It is necessary to comprehensively analyze the clinical manifestations and give correct diagnosis and treatment. Those patients who progress to AML are rare, and have a poor prognosis.

[Key words] myeloproliferative neoplasm; precursor cell lymphoblastic leukemia-lymphoma; leukemia, myeloid, acute; eosinophilia; myelodysplastic syndromes

淋巴母细胞淋巴瘤(lymphoblastic lymphoma, LBL)是一类起源于不成熟前体 B 或 T 淋巴细胞的淋巴瘤,具有高度侵袭性,占非霍奇金淋巴瘤(NHL)的 4%~12%^[1],儿童及青少年发病率较高,以男性多见。其中 T 淋巴母细胞淋巴瘤(T-LBL)占 LBL 的 85%~90%^[2]。T-LBL 临床表现多种多样,首发表现常为前纵膈生长迅速的肿块,局部压迫明显时可引起胸腔、心包积液及呼吸系统症状,如常见的胸闷、憋气、胸痛等,也可引起发热、咳嗽、腹痛、乏力纳差甚至晕厥等^[3]。T-LBL 累及广泛,可累及皮肤、中枢神经

系统、肝、脾、睾丸等部位,也可见于卵巢、儿童子宫和成人阴道。T-LBL 侵袭性强,进展快,多数患者就诊时已处于 AnnArbor 分期Ⅳ期,预后差。现报道 1 例本院收治的少见的以骨髓增殖性肿瘤(MPN)为首发表现后合并急性髓系白血病(AML)的 T-LBL 病例。

1 病例资料

1.1 病史及入院检查资料

患者,男,41 岁,因“咳嗽 1 个月,发现白细胞增多、血小板减少 3 d”于 2018 年 2 月入院。患者入院前 1 个月余无明显诱因出现阵发性咳嗽,无发热、胸

闷、气促、腹痛不适,未予诊治。后至本院门诊行血常规显示(2月28日):白细胞(WBC)计数 $82.97 \times 10^9/L$ 、中性粒细胞(NEUT)计数 $61.31 \times 10^9/L$ 、单核细胞(MONO)计数 $2.41 \times 10^9/L$ 、嗜酸细胞(EO)计数 $14.93 \times 10^9/L$ 、嗜碱细胞(BASO)计数 $0.41 \times 10^9/L$ 、血红蛋白(Hb) $119 g/L$ 、血小板(PLT)计数 $2 \times 10^9/L$ 。既往体健,个人史、家族史无特殊。入院查体:双侧颈部、腋窝、腹股沟可触及多枚肿大淋巴结,约黄豆至花生米大小不等,质韧、界清,表面光滑,活动无压痛,肝肋下未及,脾左肋下约 6 cm,表面光滑,质中等,无触痛。患者入院后查血常规显示:3月1日 WBC 计数 $157 \times 10^9/L$ 、NEUT 计数 $70.23 \times 10^9/L$ 、MONO 计数 $77.24 \times 10^9/L$ 、EO 计数 $1.31 \times 10^9/L$ 、Hb $77 g/L$ 、PLT 计数 $13 \times 10^9/L$;3月3日 WBC 计数 $43.51 \times 10^9/L$ 、NEUT 计数 $29.72 \times 10^9/L$ 、MONO 计数 $3.31 \times 10^9/L$ 、EO 计数 $8.9 \times 10^9/L$ 、BASO 计数 $0.02 \times 10^9/L$ 、Hb $104 g/L$ 、PLT 计数 $8 \times 10^9/L$ (3月2日予羟基脲降细胞对症处理)。乳酸脱氢酶(LDH) $466 U/L$ 。抗核抗体(ANAs)、抗中性粒细胞胞浆抗体(ANCA)、抗心磷脂抗体、EB病毒(EB)-DNA、巨细胞病毒(CMV)-DNA、TORCH 抗体阴性。淋巴细胞亚群未见明显异常。患者入院后出现发热,体温波动于 $38^\circ C$,多次血培养阴性。腹部 B 型超声显示:脾中度大。胸部 CT 显示:双肺下叶见斑片状、条絮样密度灶增高影,考虑炎性病灶。外周血涂片:白细胞分布明显增高,分类可见各阶段粒细胞,嗜酸(0.16)、嗜碱(0.04)及 MONO(0.12)比例均增高;骨髓涂片:有核细胞增生极度活跃,粒系异常增生,成熟嗜酸性粒细胞比例增高(占 11%),NEUT 有核浆发育失衡,原始细胞占 2%,考虑慢性粒细胞白血病。BCR-ABL 基因阴性。白血病融合基因阴性。JAK2(V617F)基因阴性。白血病预后基因阴性。染色体正常核型:46,XY。因骨髓未见明显原始细胞,所以未行免疫分型检测。

1.2 诊断思路

患者外周血及骨髓均显示为 NEUT 明显增多,伴嗜酸性粒细胞及嗜碱性粒细胞、MONO 增多,呈慢性粒细胞白血病表现,但基因及染色体未见异常,考虑患者为 MPN 可能(慢性粒单核细胞白血病? 不典型慢性粒细胞白血病?),但患者多发淋巴结肿大,考虑是否有淋巴系统肿瘤伴嗜酸性粒细胞增多可能。建议患者行淋巴结活检及相关基因检测,患者因经济原因考虑后拒绝,入院后予羟基脲降细胞、抗感染、水化、碱化等对症处理,患者白细胞明显下降,分类单核细胞逐渐下降、嗜酸性粒细胞逐渐上升(图 1);患者要求出院。

1.3 结合组织病理检查及细胞遗传学检测明确诊断

患者出院后淋巴结逐渐增大,于 3 月 21 日再次入院。入院查体:双侧颈部、腋窝、腹股沟多发淋巴结

肿大,颈部约蚕豆大小,腹股沟约鹌鹑蛋大小,界清,质韧,无压痛,活动度稍欠佳,脾大,约左肋下 6 cm,表面光滑,质中等,无触痛。3 月 21 日检查 WBC 计数 $26.08 \times 10^9/L$ 、NEUT 计数 $5.96 \times 10^9/L$ 、MONO 计数 $1.56 \times 10^9/L$ 、EO 计数 $15.86 \times 10^9/L$ 、BASO 计数 $0.08 \times 10^9/L$ 、Hb $112 g/L$ 、PLT 计数 $118.00 \times 10^9/L$ 。胸部 CT 显示:颈胸及腹盆腔、腹膜后多发广泛淋巴结肿大,脾脏肿大。骨髓涂片(3 月 21 日)显示:有核细胞结构模糊无法辨认,部分成熟红细胞呈溶解状态,考虑骨髓坏死可能;骨髓活检显示:银染色(++)、铁染色(+),符合骨髓纤维化骨髓组织学特点。复查骨髓检查(3 月 23 日):外周血涂片显示嗜酸性粒细胞明显增多(0.44),可见幼稚粒细胞;骨髓涂片显示骨髓象粒、红两系增生,巨核系尚可,嗜酸性粒细胞比例明显增高(0.27)。同时送检血小板源性生长因子 α 受体(platelet-derived growth factor receptor, PDGFR α)、血小板源性生长因子 β 受体(PDGFR β)及成纤维细胞生长因子受体 1(fibroblast growth factor receptor, FGFR1) 3 种基因的染色体荧光原位杂交(FISH)检测,行左侧颈部淋巴结活检及病理检查,并将标本送检至首都医科大学附属北京友谊医院病理科周小鸽教授处会诊。结果显示,PDGFR α 、PDGFR β 及 FGFR1 的 FISH 检测为阴性。病理会诊意见:(左颈部)淋巴结正常结构消失,见淋巴样细胞弥漫浸润,细胞小至中等大,形态单一,核卵圆形,染色质浅染,部分可见小核仁,核分裂像易见,尚混杂少数小淋巴细胞。免疫组织化学:CD20(-)、CD21(-)、CD3(+),Ki67 > 50%(+),CD5(+),CD7(+),TdT(+),CD99(+),MOP(-),CD10(-),CD34(-),CD33 弱(-)。病理诊断:非霍奇金 T-LBL。

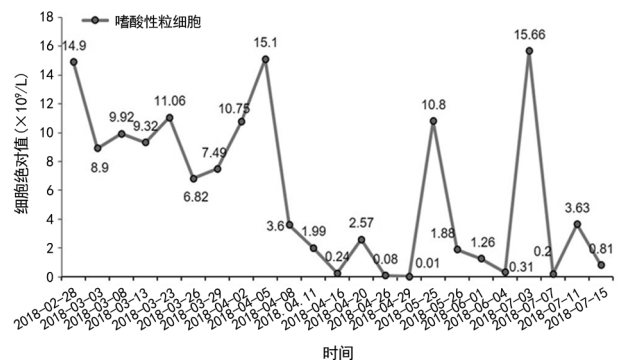


图 1 外周血嗜酸性粒细胞变化曲线图

1.4 治疗及疗效

患者诊断考虑为 T-LBL,于 2018 年 4 月开始先后予 Hyper-CVAD[第 1~3 天环磷酰胺(CTX) 1 g,第 4 天表柔吡星 150 mg,第 4、11 天长春地辛(VDS) 4 mg,第 1~4 天、第 11~14 天地塞米松 40 mg],MA(第 1 天甲氨蝶呤 1.5 g 持续 24 h 泵入;第 2~3 阿糖胞苷 3 g,每 12 小时 1 次)、MOEP(第 1~3 天米托蒽醌 6 mg,依托泊苷第 1~3 天 100 mg,第 1 天长春瑞滨 30 mg,第 1~5 天泼尼松 100 mg)、COEP(第 1 天

CTX 1.2 g,第 1~3 天依托泊苷 100 mg,第 1 天 VDS 5 mg,第 1~5 天泼尼松 100 mg)等方案共 7 次化疗,同时化疗前予鞘内化疗(地塞米松 5 mg+甲氨蝶呤 10 mg)预防中枢系统白血病,化疗后肿大淋巴结数量减少,体积明显缩小,最大者最短径约 1 cm,但淋巴结有再次反复肿大的可能,期间建议患者行异基因造血干细胞移植,患者考虑后拒绝。

2019 年 2 月初患者再次出现颈部、腹股沟淋巴结较前明显肿大,伴低热,返院行血常规检查显示(2019 年 2 月 10 日):WBC 计数 $127.04 \times 10^9/L$ 、NEUT 计数 $16.40 \times 10^9/L$ 、MONO 计数 $60.64 \times 10^9/L$ 、EO 计数 $9.99 \times 10^9/L$ 、Hb 73 g/L、PLT 计数 $14.00 \times 10^9/L$ 。骨髓涂片显示:有核细胞增生明显活跃,骨髓及外周血见大量髓系原始细胞(34.5%),可见淋巴母细胞(6%)。免疫分型:约 37.7%考虑为髓细胞原始细胞,其表达 CD45、CD34、CD33、CD13、HLA-DR、MPO;部分表达 CD38、CD15、CD56、CD7、CD16、CD64;少部分表达 CD117,约 8.3%考虑为 T 淋巴细胞群,其表达 CD45、CD3、CD8、CD2;部分表达 CD5、CD7;少部分表达 nTdT。复查 MPN 基因、白血病融合基因筛查、BCR-ABL 基因均为阴性。染色体正常。考虑进展为 AML,予 DA+VP[第 1~3 天柔红霉素(DNR) 60 mg,第 1~7 天阿糖胞苷 150 mg,长第 1、8 天春瑞滨 30 mg,第 1~7 天氢化泼尼松 55 mg]方案治疗,化疗后出现严重骨髓抑制及肺部和皮肤软组织感染,予抗感染及对症治疗病情好转出院,至今未再返院复诊。

2 讨 论

本例患者首发症状除常见的咳嗽、淋巴结肿大外,较有特点的是骨髓增殖性疾病表现,表现为外周血白细胞增多,其中嗜酸性粒细胞增多明显,骨髓涂片形态表现为慢性粒细胞白血病,但 BCR-ABL 基因为阴性,考虑 MPN 可能,查 JAK2(V617F)基因仍为阴性,结合患者多发淋巴结肿大的体征,亦有淋巴系统肿瘤伴嗜酸性粒细胞增多可能,行 PDGFR α 、PDGFR β 及 FGFR1 的 FISH 检测为阴性,最终行淋巴结病理活检确诊为 T-LBL。

ABRUZZO 等^[4]最早曾报道了类似病例,患者均为伴有嗜酸性粒细胞增多的 T-LBL,其中 1 例染色体正常的患者进展为骨髓增殖性疾病,另 1 例初诊染色体为正常,行化疗后复查染色体有 46,XX,del(7)(p12)改变,随后进展为 AML。查阅相关文献,报道病例常伴有染色体 8p11 易位改变,有 FGFR1 基因阳性,可与多种伙伴基因融合。到目前为止有如 ZNF198、CEP110、FGFR1OP1、BCR、TRIM24、MYO18A 等 15 种伙伴基因与其融合形成新的融合基因进而产生融合蛋白^[5],出现一系列临床症状:(1)常伴有嗜酸性粒细胞增多的 MPN 表现;(2)同时伴有病理类型为 T-LBL 的淋巴结肿大;(3)易进展为

AML、T 或 B 系的淋巴细胞白血病。MACDONALD 等^[6]将此类疾病定义为一组综合症状,即 8p11 骨髓增生综合征(8p11 myeloproliferative syndrome, EMS)。世界卫生组织(WHO)后将其定义为伴有 FGFR1 异常的骨髓和淋巴肿瘤,归类于伴有嗜酸性粒细胞和 PDGFR α 、PDGFR β 及 FGFR1 异常的骨髓和淋巴肿瘤类型^[7]。EMS 中融合基因及融合蛋白形成后可能产生刺激嗜酸性粒细胞等粒系或淋系祖细胞增殖的因子,从而导致嗜酸性粒细胞增多及急性白血病的产生;另外,可能与肿瘤细胞的抗原刺激 T 淋巴细胞分泌嗜酸性粒细胞刺激因子相关,而肿瘤细胞本身也可能分泌能刺激嗜酸性粒细胞的因子,引起反应性的嗜酸性粒细胞增多。

本例患者临床表现及疾病进展与 EMS 相似,但不同的是本例患者染色体为正常,PDGFR α 、PDGFR β 及 FGFR1 均为阴性。LAMB 等^[8]也曾报道过 1 例伴嗜酸性细胞增多的 T-LBL/LL 合并 AML 病例,染色体为正常,也同样具有相似的临床症状和体征及较差的预后。这些病例染色体并未见典型的 8p11 改变及 FGFR1 阳性,但仍有嗜酸性粒细胞明显增多,提示伴有嗜酸性粒细胞增多可能预后不良。而染色体核型分析及 FISH 对 EMS 诊断的价值也应正确评估,因为伴有 MPN 样临床表现及淋巴结肿大的 T-LBL 在其他疾病并不常见,可能不是所有患者都存在结构性的 8 号染色体异常,染色体正常也应考虑有 EMS 的可能^[9]。如本病例以嗜酸性粒细胞增多 MPN 为首发表现的 T-LBL 进展为 AML 者罕见,进展为急性白血病后行染色体检测亦为正常,未见明显的 7q-或 11q23 等与化疗相关的异常改变,所以本例患者染色体虽未见典型的 8p11 改变也应考虑有潜在的 EMS 可能。

淋巴瘤进展为急性白血病既往亦有报道,通常认为淋巴母细胞、粒系原始细胞来源于共同的多能干细胞,进展的 AML 可能是由 T-LBL 谱系转换而来。淋系常转换为髓系,而相反的情况相对少见^[10]。LBL 患者免疫缺陷严重,免疫抑制可能也是急性白血病发展的机制,而接受免疫抑制治疗的患者亦暴露了白血病干细胞的可塑性,使其出现谱系转变^[11]。另外,如果患者接受的治疗只针对分化程度高于白血病干细胞的白血病细胞,那么白血病干细胞就可以沿着不受治疗影响的途径分化。并且 LBL 合并 AML 的患者中细胞因子如巨噬细胞集落刺激因子(M-CSF)、粒细胞集落刺激因子(G-CSF)和粒细胞巨噬细胞刺激因子(GM-CSF)明显升高,提示细胞因子可能也促进了白血病的发生与发展^[12]。

LBL 合并急性白血病目前尚无标准治疗方案,一般多采用淋系兼髓系的多药联合强化化疗方案。本例患者经过多次急性淋巴细胞白血病样方案的多药联合强化化疗后达到部分缓解,随后合并 AML,采用兼顾淋系及髓系的化疗方案治疗后未再复诊。张宗

等^[13]报道了 4 例 T-LBL 合并 AML 患者,予 VDCLP [VDS、DNR、左旋门冬酰胺酶(L-ASP)、泼尼松、阿糖胞苷(Ara-c)、CTX]、Hyper-CVAD、CAG(阿柔比星+Ara-c+G-CSF)等化疗,部分患者取得缓解,未行造血干细胞移植,后均进展死亡。另外,现代治疗如 GMALL 的 2003 急淋样方案及 GRAALL-Lysa LL03 方案[由 GRAALL2003 方案省去纵膈放疗(mediastinal radiation therapy,MRT)演化而来]可以获得更好的存活^[14]。自体造血干细胞移植既往作为治疗后的巩固手段,近期的研究也提示有较高的预后,但与现代治疗的高强度化疗相比并无明显更好的获益。复发、难治及有高危因素的患者化疗疗效较差,异基因造血干细胞对此类患者可能有效。董红娟等^[15]提供 1 例 AML 合并 T-LBL 病例,先后予 DAP(DNR+Ara-c+甲泼尼龙)、CHOPLE(CTX+吡柔比星+长春新碱+甲泼尼龙+培门冬酶+依托泊苷)方案治疗,化疗后肿大淋巴结消失,但骨髓未缓解,此后予 IDA-A-E(去甲氧柔红霉素+Ara-c+依托泊苷)、ME(米托蒽醌+依托泊苷)、CAG 方案化疗,骨髓达到部分缓解,后行清髓性 HLA 全相合亲缘性异基因外周血造血干细胞移植,造血重建,复查骨髓原始细胞未见,定期随访处于无病生存状态。与接受全相合供者的造血干细胞移植患者相比,非全合或者无关供者移植的高危患者可能更能从移植抗白血病(graft-versus-leukemia,GvL)效应中获益^[16]。此外,随着医学发展,新的药物如奈拉屈滨、各类靶向药物(如 CD52、CD30 单抗)、小分子抑制剂(如 NOTCH1 抑制剂)等将会发挥更多的作用。对于 EMS 患者,新的药物如酪氨酸激酶抑制剂等有初步疗效,可作为不适合移植患者或桥接移植患者的治疗选择之一,但异基因造血干细胞移植仍是少数可争取到较长生存期或治愈的唯一方式^[17]。

本病例启示了临床工作者在接诊有 MPN 疾病临床表现的患者时需警惕本病的可能性,为临床中 T-LBL 或合并 AML 的患者的诊治提供了一定参考。患者经多次联合化疗后达到部分缓解,提示了 T-LBL 合并 AML 用多药联合强化化疗有一定疗效,但随后进展为 AML,提示疗效有限,异基因造血干细胞移植可能仍是治疗的最终手段,有待进一步探索。

参考文献

- [1] CHEN P, CHU A, ZIA H, et al. CD25 expression in B lymphoblastic leukemia/lymphoma predicts t(9;22)(q34;q11)/philadelphia chromosome translocation (Ph) and is associated with residual disease in Ph-negative patients [J]. *Am J Clin Pathol*, 2016, 146(5):632-638.
- [2] ROSSIG C, PULE M, ALTVATER B, et al. Vaccination to improve the persistence of CD19CAR gene-modified T cells in relapsed pediatric acute lymphoblastic leukemia [J]. *Leukemia*, 2017, 31(5):1087-1095.
- [3] 杨萍, 赵伟, 景红梅, 等. 30 例 T 淋巴母细胞淋巴瘤患者临床特点及疗效分析[J]. *中国实验血液学杂志*, 2016, 24(4):1056-1060.
- [4] ABRUZZO L V, JAFFE E S, COTELINGAM J D, et al. T-cell lymphoblastic lymphoma with eosinophilia associated with subsequent myeloid malignancy[J]. *Am J Surg Pathol*, 1992, 16(3):236-245.
- [5] KHODADOUST M S, LUO B, MEDEIROS B C, et al. Clinical activity of ponatinib in a patient with FGFR1-rearranged mixed-phenotype acute leukemia[J]. *Leukemia*, 2015, 30(4):947-950.
- [6] MACDONALD D, AGUIAR R C, MASON P J, et al. A new myeloproliferative disorder associated with chromosomal translocations involving 8p11: a review [J]. *Leukemia*, 1995, 9:1628-1630.
- [7] ARBER D A, ORAZI A, HASSERJIAN R, et al. The 2016 revision to the World Health Organization classification of myeloid neoplasms and acute leukemia[J]. *Blood*, 2016, 127(20):2391-2405.
- [8] LAMB JR L S, NEUBERG R, WELSH J, et al. T-cell lymphoblastic leukemia/lymphoma syndrome with eosinophilia and acute myeloid leukemia[J]. *Cytometry B Clin Cytom*, 2005, 65(1):37-41.
- [9] 黄辉, 谢万灼, 沈丹, 等. 8p11 骨髓增殖综合征一例并文献复习[J]. *白血病·淋巴瘤*, 2017, 26(1):52-54.
- [10] AUJLA A, HANMANTGAD M, ISLAM H, et al. Lineage switch from T-cell lymphoblastic leukemia/lymphoma to acute myeloid leukemia and back to T-cell lymphoblastic leukemia/lymphoma in a patient diagnosed during pregnancy[J]. *Stem Cell Investig*, 2019, 6:12.
- [11] JACOBY E, NGUYEN S M, FOUNTAINE T J, et al. CD19 CAR immune pressure induces B-precursor acute lymphoblastic leukaemia lineage switch exposing inherent leukaemic plasticity [J]. *Nat Commun*, 2016, 7:12320. (下转第 2379 页)

的波长 585 nm 为目前最常用且最为有效的波长,同时不良反应也较少。脉冲染料激光的治疗终点是靶血管立刻凝固或消失,故在治疗毛细血管性相关性疾病时,予以高密度能量输出时能在极短的时间内产生极高的温度,充分作用于毛细血管内的血红蛋白后,可致使血管内的血红蛋白变性、凝固,从而致使毛细血管萎缩凋亡。因其可选择性破坏毛细血管而不损伤血管周围的相关皮肤组织,所以治疗后患儿发生瘢痕等严重不良反应的概率很低。本病的临床治疗效果主要取决于血管直径、深度及血管壁的厚度^[10]。深部的血管因位于皮肤组织及浅表血管之下,故能吸收的能量偏少,致使血管的损伤作用偏弱,而且血管位置越深,管壁厚度越厚,治疗效果越差。而产生 AS 的血管主要位于真皮乳头层,位置较为表浅,因此脉冲染料激光治疗效果较好^[11]。激光治疗时,能量密度的高低也是影响治疗效果的因素之一。对于薄嫩部位的皮损,本研究第 1 次治疗时给予的能量稍低,常规剂量为 7.0 J/cm²,但如果第 1 次疗效较差,第 2 次治疗时可增加 0.5 J/cm²。

本文报道的 20 例 AS 患儿经过 1~3 次激光治疗后,均取得较为理想的治疗效果,且所有患儿治疗后均未出现水疱及瘢痕,其中有 6 例患儿局部遗留少许色素沉着,1 例患儿局部出现散在小面积色素减退斑。所有患儿在完成相关治疗后均于门诊随访 6~18 个月,残余的色素沉着及减退斑均基本上消失。

综上所述,脉冲染料激光(585 nm)是治疗 AS 的一种安全且有效的手段。

参考文献

- [1] BHUSHAN P, THATTE S S, SINGH A. Angioma serpiginosum; a case series of 4 patients [J]. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*, 2016, 82(5):588.
- [2] SHARINA V K, KHANDPUR S. Unilateral nevoid telangiectasia-response to pulsed dye laser[J]. *Int J Dermatol*, 2006, 45(8):960-964.
- [3] KATTA R, WAGNER A. Angioma Serpiginosum with extensive cutaneous involvement[J]. *J Am Acad Dermatol*, 2000, 42(2 Pt 2):384-385.
- [4] CHEN J H, WANG K H, HU C H, et al. Atypical angioma serpiginosum[J]. *Yonsei Med J*, 2008, 49(3):509-513.
- [5] SANCHETI K, DAS A, PODDER I, et al. Angioma serpiginosum in a patchy and blaschkoid distribution; a rare condition with an unconventional presentation [J]. *Indian J Dermatol*, 2016, 61(5):570-572.
- [6] DAS D, NAYAK C S, TAMBE S A. Blaschkolinear angioma serpiginosum[J]. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*, 2016, 82(3):335-337.
- [7] KUONEN F, GAIDE O. Clues in Dermoscopy: dermoscopy of angioma serpiginosum[J]. *Eur J Dermatol*, 2016, 26(1):118.
- [8] SANDHU K, GUPTA S. Angioma serpiginosum; report of two unusual cases[J]. *J Eur Acad Dermatol Venereol*, 2005, 19(1):127-128.
- [9] 吴伟芬, 李通城, 庄建波, 等. 匍行性血管瘤 5 例临床与病理分析[J]. *皮肤性病诊疗学杂志*, 2018, 25(4):209-211.
- [10] FISKESTRAND E J, SVAASAND L O, KOPSTAD G, et al. Phototilemally induced vessel-wall necrosis after pulsed dye laser treatment; lack of response in port-wine stains with small sized or deeply located vessels[J]. *J Invest Dermatol*, 1996, 107(5):671-675.
- [11] SHARMA V K, KHANDPUR S. Unilateral nevoid telangiectasia-response to pulsed dye laser [J]. *Int J Dermatol*, 2006, 45(8):960-964.

(收稿日期:2020-02-11 修回日期:2020-04-28)

(上接第 2376 页)

- [12] HU T, MURDAUGH R, NAKADA D. Transcriptional and microenvironmental regulation of lineage ambiguity in leukemia[J]. *Front Oncol*, 2017, 7:268.
- [13] 张宗, 归薇, 白敏, 等. 淋巴母细胞淋巴瘤并存急性髓系白血病[J]. *中国实验血液学杂志*, 2018, 26(5):1378-1383.
- [14] LEPRETRE S, TOUZART A, VERMEULIN T, et al. Pediatric-like acute lymphoblastic leukemia therapy in adults with lymphoblastic lymphoma. The GRAAL-LYSA LL03 study [J]. *J Clin Oncol*, 2016, 34(6):572-580.
- [15] 董红娟, 吴雯, 王健红, 等. 伴复杂核型的急性髓系白血病合并 T 淋巴母细胞淋巴瘤一例[J]. *中华血液学杂志*, 2016, 37(3):237.
- [16] DICKINSON A M, NORDEN J, LI S, et al. Graft-versus-leukemia effect following hematopoietic stem cell transplantation for leukemia [J]. *Front Immunol*, 2017, 8:496.
- [17] LANDBERG N, DREIMANE A, RISSLER M, et al. Primary cells in BCR/FGFR1-positive 8p11 myeloproliferative syndrome are sensitive to dovitinib, ponatinib, and dasatinib[J]. *Eur J Haematol*, 2017, 99(5):442-448.

(收稿日期:2019-12-29 修回日期:2020-03-11)