

低级别子宫内膜间质肉瘤自发破裂致无菌性腹膜炎 1 例

曾 静¹, 肖南岑¹, 刘禄斌², 赵成志²

(1. 重庆市渝北区中医院妇科, 重庆 401120; 2. 重庆市妇幼保健院妇科盆底与肿瘤科, 重庆 400021)

Aseptic peritonitis caused by spontaneous rupture of low-grade endometrial stromal sarcoma: a case report

Zeng Jing¹, Xiao Nancen¹, Liu Lubin², Zhao Chengzhi²

(1. Department of Gynecology, Yubei District Hospital of Traditional Chinese Medicine;

2. Department of Gynecology, Pelvic Floor and Oncology, Chongqing Maternal and Child Health Hospital)

【中图分类号】R711.74

【文献标志码】B

【收稿日期】2020-01-07

子宫内膜间质肉瘤(endometrial stromal sarcoma, ESS)是来源于子宫内膜间质的恶性肿瘤, 占所有子宫恶性肿瘤的 0.2%~1.0%, 占子宫肉瘤的 6%~20%^[1]。低级别子宫内膜间质肉瘤(low-grade endometrial stromal sarcoma, LG-ESS)是第二常见的子宫间质性肿瘤^[2], 多发于围绝经期女性, 很少发生在年轻女性中, 但有 16 岁青少年发病的报道^[3]。LG-ESS 具有惰性、缓慢生长、复发推迟及复发率高的特点, 其术前诊断困难, 治疗上也尚有争议。本例为 LG-ESS 瘤体自发破裂引起无菌性腹膜炎, 通过检索国内外文献属首次报道, 故予以分析报道。

1 病例报告

患者, 女, 49 岁, 因“下腹部疼痛 2 d, 加重 1 d”于 2019 年 6 月 9 日入院, 患者 2 d 前无明显诱因出现下腹隐痛, 呈

持续性, 能忍受, 排便排气后稍缓解, 不伴恶心呕吐等不适, 未予就医; 入院前 1 d 疼痛加重, 呈持续性不缓解, 伴恶心, 无呕吐, 有里急后重及腰骶部坠胀, 肛门有排气, 二便无异常, 急诊就诊重庆市渝北区中医院门诊。血常规: WBC 5.46×10^9 个/L, N 65.50%, HB 107.0 g/L; 超声检查示子宫前位, 大小约 12.4 cm × 6.9 cm × 5.9 cm, 子宫肌层回声欠均质, 左侧壁见一低回声, 大小约 6.7 cm × 7.4 cm, 形态规则, 边界清, 内部回声欠均质, CDFI 可见血流信号, 双附件区均未见明显异常, 盆腔内未见明显积液征象; CT 示子宫体积增大, 形态及密度改变, 考虑腺肌症可能; 降结肠远端与乙状结肠近段肠壁稍增厚伴周围渗出影, 考虑炎性病变可能, 伴局限性腹膜炎(图 1)。查体: T 36.8 °C, P 87 次/min, R 16 次/min, BP 138/70 mmHg, 急性痛苦病容, 被动体位, 心肺正常, 肝脾未触及, 腹稍膨隆, 全腹轻压痛, 反跳痛, 以左下腹为重, 麦氏点无压痛, 无肌紧张。既往史无特殊。月经史: LMP2019-05-30, 平素月经规律呈 5~6/30 型, 月经周期及量正常, 伴重度痛经, 偶需口服止痛药物, G₂P₂, 均顺产。家族史: 父亲胃癌病故, 母亲健在, 哥哥糖尿病史。妇科检查: 外阴、阴道(-), 宫颈肥大光滑, 举摆痛(+), 子宫增大如 3+个月孕, 子宫左后壁靠宫角处可触及拳头大小的肿物, 质硬, 与子宫关系密切, 压痛明显, 左附件区稍增厚伴压痛, 右附件区未触及明显异常, 无压痛反跳痛。入院诊断: ①腹痛待查: 子宫浆膜下肌瘤扭转? 其他? ②子宫腺肌病? ③子宫肌瘤? 具备手术指征, 行腹腔镜探

作者介绍: 曾 静, Email: 583414714@qq.com,

研究方向: 妇科肿瘤与微创。

通信作者: 赵成志, Email: chengzi_555@qq.com。

基金项目: 重庆市自然科学基金资助项目(编号: cstc2019jcyj-msxm 0877)。

优先出版: <https://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1046.R.20200619.1332.003.html>
(2020-06-19)

查术,见子宫后位,稍增大,于子宫左后壁近宫角处突出约 7 cm × 6 cm × 6 cm 大小的“肌瘤样”实质性肿物,表面见 1 长约 4 cm 破裂口,伴糟脆烂肉样组织坎顿于破口处,大网膜趋附覆盖,破口无活动性出血(图 2、图 3),双侧卵巢及输卵管正常,盆腔内约 80 mL 淡黄色液体;给予患者行全子宫+双输卵管切除,装袋从阴道取出,大量灭菌用水冲洗盆腹腔;剖视标本可见宫内膜、双输卵管外观正常,子宫肌层可见多发肌瘤及腺肌瘤病灶,左侧宫角病灶与子宫边界不清,无漩涡状改变,组织朽脆,“烂鱼肉”样,伴淡黄色渗出液体;术中探查淋巴结无肿大,冰冻病例检查提示子宫恶性肿瘤,分型待石蜡及免疫组化,与家属沟通术后同时补切双侧卵巢。术后石蜡病理诊断:低级别子宫内膜间质肉瘤;免疫组化:CD10(+),Actin(+),h-caldesmin(-),ck(-),Vimentin ER(弱+),PR(+),WT-1(-),inhibin(-),caretinin(-),CD117(-),cyclinD1(个别细胞+),DOG1(-),CD34(脉管+),Ki67(10%+)。双卵巢、双输卵管、多点腹膜均未见肿瘤浸润。术后 6 d 患者顺利出院,后患者转外院行盆腔外照射+口服甲地孕酮治疗,现随访半年无复发迹象。

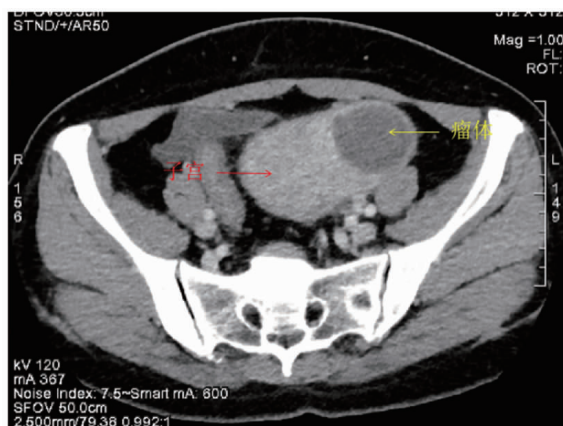


图 1 CT 显示宫体及瘤体位置

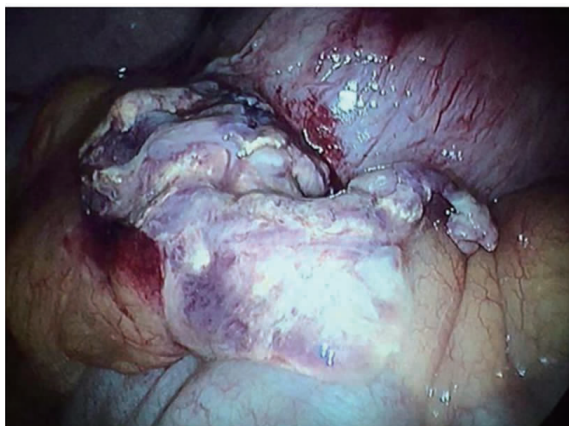


图 2 可见朽脆组织覆盖于肠管表面

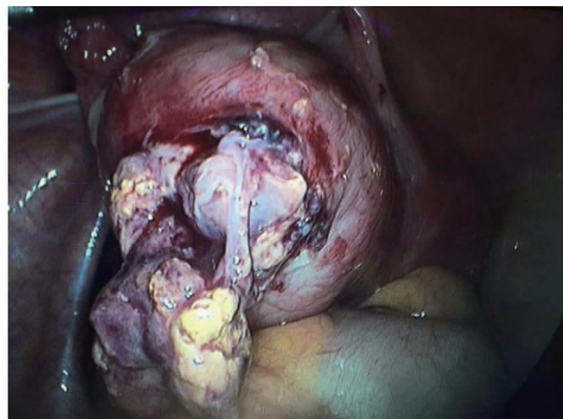


图 3 可见瘤体破口及内容物坎顿

2 讨论

LG-ESS 的临床表现与子宫(腺)肌瘤的临床表现相似,无特异性,可表现为异常阴道流血、盆腔疼痛^[2]。本例报告中首先表现为持续性下腹隐痛,进而出现疼痛加重,伴有恶心、里急后重及腰骶部坠胀;术中见瘤体外突,盆腔内约 80 mL 淡黄色液体,无积血及血性液体,推测肿瘤因缺血变性坏死致瘤体内张力增高,加之瘤体凸向子宫浆膜层,易出现自发破裂,且出现下腹隐痛的时间为瘤体破裂的时间,腹痛加重的原因为破裂瘤体渗出液刺激肠管、腹膜所致,与 CT 表现相符。

该患者入院考虑诊断为子宫浆膜下肌瘤扭转,卵巢肿瘤蒂扭转等其他诊断不排除。虽然子宫浆膜下肌瘤扭转较少发生,但也被多次报道^[4-5]。其主要临床表现为一侧下腹疼痛,初为隐痛,后为持续性逐渐加剧或不加剧,可伴恶心、呕吐、低热等;超声检查宫旁低回声包块;血常规检查白细胞及中性比例无改变或轻度升高^[4]。与本病例相符,故考虑该诊断,这也是导致误诊的首要原因。这也提示对于有肌瘤、腺肌瘤的患者发生腹痛时,需警惕该类肿瘤自发破裂的可能性。术前超声及 CT 均未发现瘤体破裂的征象,而术后再次复核影像检查仍不能确诊瘤体破裂,究其原因可能与瘤体变性致回声改变、周围肠管炎性渗出、破裂征象不典型等有关,所以需重视术前病史的询问、评估和查体。有报道称,磁

共振成像和相应肿瘤标记物的检测可能有一定价值,如血清乳酸脱氢酶浓度的测定^[6]。

对于 LG-ESS 自然破裂或医源性操作污染盆腔的病例,参照 2019 NCCN 子宫肿瘤临床实践指南的分期^[7],本病例诊断 II B 期较为恰当。治疗上按照子宫肉瘤诊断与治疗指南(第四版)对于前次手术行子宫或肌瘤粉碎术的患者,应再次进腹清理散落病灶,尽可能彻底减灭肿瘤细胞^[8]。对于子宫外有病灶者需行全子宫+双附件切除,同时切除转移病灶,包括转移淋巴结的切除。近来的 1 项研究发现,淋巴结清扫仅对预测预后有帮助,对于无复发生存率和总生存率并无益^[9]。本例患者术中淋巴无肿大,仅接受全宫+双附件切除手术,并未进一步行淋巴清扫术,术后行盆腔外照射治疗+口服甲地孕酮治疗,随访 8 个月无复发,但因为 LG-ESS 复发推迟、复发率高的特点,需要随访更长时间^[10]。

术中灭菌用水冲洗盆腹腔的操作对于肿瘤患者十分重要。而对于术前诊断未明确、腹腔镜探查发现瘤体破裂且性质不明的患者,选择中转开腹可能更加符合无瘤原则。1 项法国的回顾性研究发现,对于子宫肉瘤的患者实施粉碎旋切术,术后 3 个月复发率增加^[11]。另 1 项研究发现,术后诊断为子宫内膜间质肉瘤的 3 例患者行经腹手术治疗,手术分期无改变^[12]。

因 LG-ESS 较为少见,而自发破裂更是罕见,此属首次报道。患者以腹痛为主要表现,术前未确诊,术中证实,瘤体破裂污染盆腹腔,复发风险增加。对于肿瘤性质待定的患者,必须遵循无瘤原则,个体化选择盆腔外照射及雌激素阻断剂治疗,也需严密长期随访,提前预警复发并即时诊治。总之,对于这类罕见的肿瘤诊治,因无经验可循,需结合患者的

情况个体化选择治疗方案。

参 考 文 献

- [1] Chan JK, Kavar NM, Shin JY, et al. Endometrial stromal sarcoma: a population-based analysis[J]. Br J Cancer, 2008, 99(8): 1210-1215.
- [2] Ali RH, Rouzbahman M. Endometrial stromal tumours revisited: an update based on the 2014 WHO classification[J]. J Clin Pathol, 2015, 68(5): 325-332.
- [3] Stadvold JL, Molpus KL, Baker JJ, et al. Conservative management of a myxoid endometrial stromal sarcoma in a 16-year-old nulliparous woman[J]. Gynecol Oncol, 2005, 99(1): 243-245.
- [4] 常 飞. 子宫浆膜下肌瘤蒂扭转 1 例[J]. 重庆医学, 2004, 33(6): 945.
- [5] 林丽莎, 何晓宇, 何春妮, 等. 子宫浆膜下肌瘤子宫扭转一例[J]. 福州总医院学报, 2002, 13(2): 113.
- [6] Della Badia C, Karini H. Endometrial stromal sarcoma diagnosed after uterine morcellation in laparoscopic supracervical hysterectomy[J]. J Minim Invasive Gynecol, 2010, 17(6): 791-793.
- [7] 谢玲玲, 林荣春, 林仲秋. 《2019 NCCN 子宫肿瘤临床实践指南(第 1 版)》解读[J]. 中国实用妇科与产科杂志, 2018, 34(12): 1372-1377.
- [8] 周 琦, 吴小华, 刘继红, 等. 子宫肉瘤诊断与治疗指南(第四版)[J]. 中国实用妇科与产科杂志, 2018, 34(10): 1106-1110.
- [9] Bai H, Yang J, Cao D, et al. Ovary and uterus-sparing procedures for low-grade endometrial stromal sarcoma: a retrospective study of 153 cases[J]. Gynecol Oncol, 2014, 132(3): 654-660.
- [10] Amant F, Floquet A, Friedlander M, et al. Gynecologic Cancer InterGroup (GCIG) consensus review for endometrial stromal sarcoma[J]. Int J Gynecol Cancer, 2014, 24(9S3): 67-72.
- [11] Morice P, Rodriguez A, Rey A, et al. Prognostic value of initial surgical procedure for patients with uterine sarcoma: analysis of 123 patients[J]. Eur J Gynaecol Oncol, 2003, 24(3-4): 237-240.
- [12] Einstein MH, Barakat RR, Chi DS, et al. Management of uterine malignancy found incidentally after supracervical hysterectomy or uterine morcellation for presumed benign disease[J]. Int J Gynecol Cancer, 2008, 18(5): 1065-1070.

(责任编辑:冉明会)