

个案报道

DOI: 10.13406/j.cnki.cyx.002964

宫腔镜治疗无性生活女性阴道斜隔综合征 3 例报道

陈明倩, 刘 宝, 池余刚, 谢海霞
(重庆市妇幼保健院妇科, 重庆 400021)

Hysteroscopic treatment of oblique vaginal septum syndrome in asexual women: 3 cases report

Chen Mingqian, Liu Bao, Chi Yugang, Xie Haixia

(Department of Gynecology, Chongqing Health Center for Women and Children)

【中图分类号】R713.3

【文献标志码】B

【收稿日期】2021-04-07

阴道斜隔综合征(oblique vaginal septum syndrome, OVSS) 又称 Herlyn-Werner-Wunderlich 综合征(Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome, HWWS), 也可被称为梗阻性阴道分隔及同侧肾畸形综合征(obstructed hemivagina ipsilateral renal agenesis, OHVIRA), 是一种先天性的女性泌尿生殖道畸形, 其临床特点为双子宫双宫颈、阴道斜隔及斜隔侧泌尿系统畸形(如肾缺如), 主要与胚胎期苗勒管发育缺陷有关^[1]。研究报告其发病率为 0.16%~10.00%^[2], 通常在月经初潮后发现, 因月经引流不畅出现经期延长、阴道分泌物异常、痛经等就诊, 可合并盆腔子宫内膜异位症^[3]。患者就诊时多为青春期, 无性生活, 治疗需在尽可能不破坏处女膜前提下切除阴道斜隔, 缓解患者临床症状的同时减少对患者心理的不良影响。本文报道 3 例由宫腔镜成功治疗的无性生活史阴道斜隔综合征患者, 并综述相关文献, 探讨宫腔镜手术前预处理的方式及术中的注意事项, 为该病的诊治提供临床参考。

1 病历资料

病例 1, 患者, 女, 20 岁。因“痛经 5 年, 发现生殖道畸形 4 年”入院, 未婚无性生活史, 平素月经欠规律, 月经初潮 15 岁, 6/(20~37) d, 量偏少, 有痛经, LMP: 2020-08-25。5 年前月经初潮后出现痛经, 逐渐加重, 持续至经后 2 d, 需服用止痛药。4 年前患者于重庆市妇幼保健院查超声提示双子宫畸形。妇科检查: 外阴发育正常。肛查: 未扪及明显异常, 判断欠清。经直肠三维超声检查: 可见 2 个子宫体宫颈声像图。右侧

阴道内可见范围约 7.2 cm × 3.6 cm 无回声区。盆腔 MRI 增强考虑阴道斜隔综合征可能, 斜隔下缘距离阴道外口距离约为 2.9 cm。腹部超声: 右肾未显示: 缺如? 术前通过静脉输液细管用碘伏冲洗阴道减少术后感染。行宫腔镜下阴道斜隔电切术+宫腔镜检查术+阴道水囊压迫术。术中所见如图 1 所示, 术中膨宫压力为 80~100 mmHg, 根据膨宫情况适当调整, 膨宫液流速 300~500 mL/min, 先以 4.5 mm 检查镜沿阴道逐渐进入, 阴道内距离处女膜缘约 3 cm 见一斜隔, 长度约 3.5 cm, 隔上见一 0.4 cm 裂孔, 沿左侧宫颈管进入左侧宫腔, 见左侧宫腔输卵管开口。更换 8.5 mm 电切镜, 沿斜隔开口逐渐电切斜隔组织, 见淡黄色脓液流出, 反复冲洗脓液, 电切斜隔组织上缘达宫颈外口, 下缘达阴道壁, 阴道放置水囊, 囊液 20 mL。手术时长 45 min, 术中失血 20 mL。术后予以抗炎治疗, 保留阴道水囊 3 d。术后诊断: 阴道斜隔综合征(Ⅱ型)。术后 1 个月(2020-11-04)复查经直肠三维超声检查子宫畸形: 双子宫、双宫颈、双阴道。术后第 3 个月、第 6 个月电话随访患者月经来潮情况, 诉月经来潮无痛经, 无月经淋漓不尽。

病例 2, 患者, 女, 12 岁。因“痛经半年, 发现生殖道畸形 1 个月”入院, 未婚无性生活史, 平素月经规律, 月经初潮 11 岁, 7/(28~30) d, 量时多时少, 有痛经(需口服止痛药), LMP: 2020-10-29。1 个月前患者因腹痛就诊于外院彩超考虑完全纵膈子宫, 阴道斜隔, 左侧卵巢旁无回声, 输卵管积液。因“盆腔脓肿”于外院行剖腹探查术。自诉术后第 2 天阴道出现脓性分泌物, 持续至 10 d 后自行干净。妇科检查: 外阴: (-); 肛查直肠前方可扪及囊性包块。重庆市妇幼保健院查三维超声: 盆腔内见 2 个宫体宫颈声像图, 于左侧宫体、宫颈至阴道内均见范围约 5.8 cm × 2.5 cm 无回声区。左附件区见范围约 6.1 cm × 3.1 cm 无回声区, 考虑阴道斜隔综合征。全腹部磁共振成像(magnetic resonance imaging, MRI)增强(图 2): 考虑阴道斜隔综合征伴左侧阴道内积血, 斜隔下缘距离阴道外口距

作者简介: 陈明倩, Email: 2226595434@qq.com,

研究方向: 妇科微创。

通信作者: 刘 宝, Email: lldream@163.com。

优先出版: <https://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1046.R.20211221.1603.024.html>
(2021-12-24)

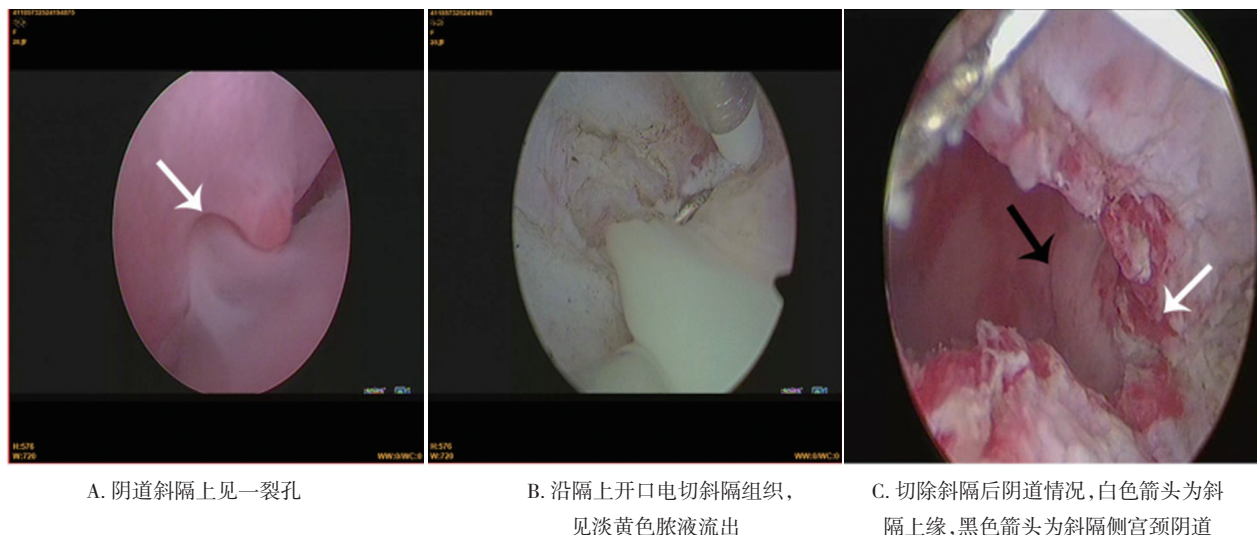
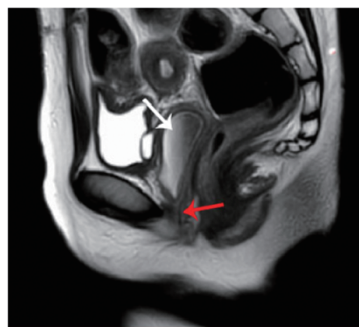
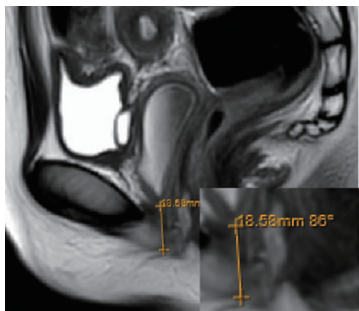


图 1 病例 1 宫腔镜所见

离约为 1.86 cm; 左肾缺如。行宫腔镜下阴道斜隔电切术+子宫内膜息肉摘除术+阴道水囊压迫术。术中所见: 阴道内距离处女膜缘约 2 cm 见一斜隔组织, 斜隔上见一小孔, 施行手术, 切除斜隔后, 见左侧宫腔后壁约 0.7 cm × 0.5 cm 息肉样组织, 予以切除。手术时长 30 min, 术中失血 10 mL。术后予以抗炎治疗, 置阴道水囊 15 mL。术后保留水囊 3 d。术后病检回示: (宫腔) 子宫内膜息肉。术后诊断: 阴道斜隔综合征 (II 型), 子宫内膜息肉。患者术后未遵嘱门诊复查超声, 术后 3 个月电话随访患者月经来潮情况, 诉无痛经、无月经淋漓不尽。



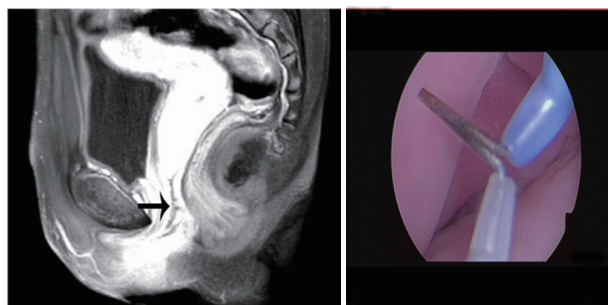
A. 白色箭头所指为斜隔侧阴道积液, 红色箭头所指为正常阴道气线



B. 斜隔下缘与阴道外口距离

图 2 病例 2 MRI 增强所见

病例 3, 患者, 女, 13 岁。因“月经淋漓不尽 6 个月, 发现生殖道畸形 2 个月”入院, 未婚无性生活史, 平素月经规律, 月经初潮 13 岁, 7/30 d, 量中, 无痛经, LMP: 2020-10-07。6 个月前 (初潮后 1 个月, 2020-06 月经初潮) 患者无明显诱因出现月经淋漓不尽, 月经后每日有硬币大小出血, 持续至下次月经来潮, 2 个月前重庆市妇幼保健院查超声考虑阴道斜隔综合征。妇科情况: 外阴发育正常。肛查: 未扪及明显异常, 判断欠清。经直肠三维超声检查: 右侧阴道考虑积血; 综合考虑阴道斜隔综合征。盆腔 MRI 增强提示 (图 3A): 阴道上段中份见一斜隔纵行走形, 斜隔上端似见一孔洞, 斜隔下端连于阴道右前壁, 右侧阴道上段囊性扩张, 下端距离阴道外口约 1.9 cm。泌尿系超声: 右肾未显示。行宫腔镜下阴道斜隔电切术+阴道水囊压迫术。术中见 (图 3B): 阴道内距离处女膜缘约 2 cm 见一斜隔向上走行, 阴道斜隔隆起约 4 cm × 4 cm × 3 cm, 取斜隔最膨隆处为切开点施行手术。术毕置阴道水囊 8 mL。手术时长 45 min, 术中失血 10 mL。术后予以抗炎治疗, 保留宫腔水囊 3 d。术后诊断: 阴道斜隔综合征 (I 型)。术后 20 d 患者随访超声提示: 子宫超声所见考虑子宫畸形-双子宫、双宫颈、双阴道。术后 2 个月电话随访患者月经来潮情况, 诉月经来潮后无淋漓不尽, 经期 6~7 d。



A. 正常阴道气线

B. 阴道斜隔隆起

图 3 病例 3 MRI 增强及宫腔镜所见

2 讨论

2.1 阴道斜隔综合征分型

阴道斜隔综合征的发生与胚胎期苗勒管发育异常有关,妊娠 8 周左右,双侧苗勒管上段分离,发育为双侧输尿管,下段于中线处合并形成子宫、宫颈及阴道上段,当一侧苗勒管发育不良,导致同侧肾脏输尿管发育不良或缺如,因双侧苗勒管远端无法融合,形成双子宫双宫颈,阴道形成盲端^[4]。阴道斜隔综合征分为 3 型^[5]: I 型为无孔斜隔型,一侧阴道完全闭锁,阴道斜隔后的子宫与外界及对侧子宫完全隔离; II 型为有孔斜隔型,一侧阴道不完全闭锁,阴道斜隔上有 1 个直径数毫米的小孔,斜隔后的子宫与对侧子宫隔绝; III 型为无孔斜隔合并宫颈瘘管型,一侧阴道完全闭锁,在两侧子宫颈之间或斜隔后腔与对侧子宫颈之间有一小瘘管。但 Liu MJ 等^[6]提出了第 IV 类分类,表现为宫颈阴道闭锁不与子宫相通,一侧阴道完全梗阻,隔后宫颈发育不良或闭锁。这种类型显示出独特的超声特征(图 4),主要表现为子宫积血和同侧卵巢子宫内膜异位囊肿,常合并残角子宫,而没有其他 3 个分类共有的阴道积血表现。

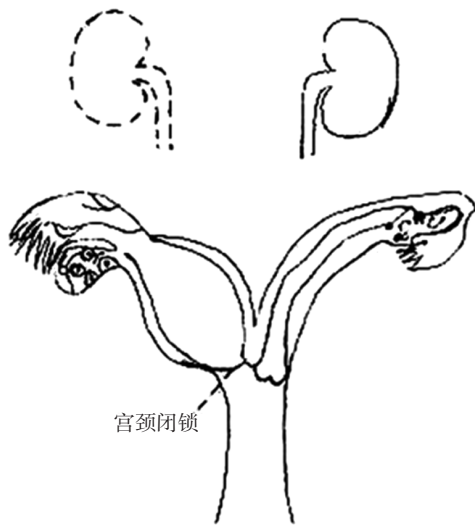


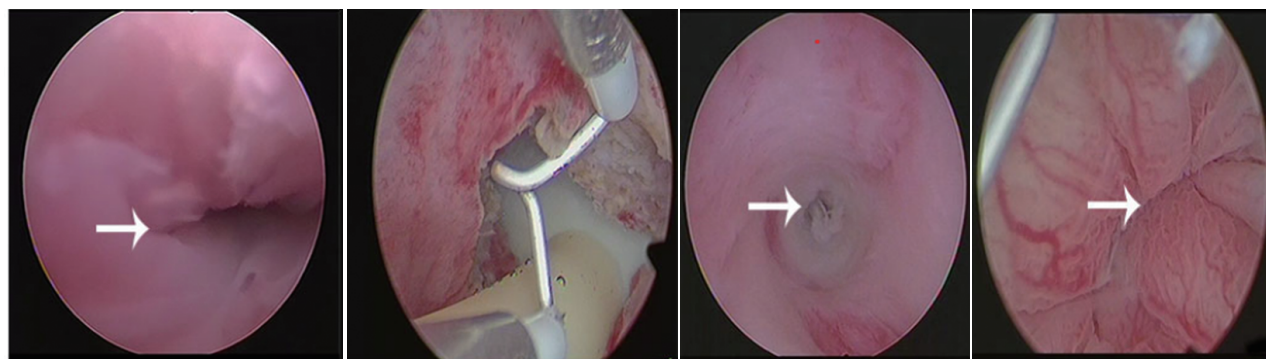
图 4 第 IV 类类型

2.2 宫腔镜治疗阴道斜隔综合征的优势及经验分享

手术是治疗阴道斜隔综合征的唯一办法,在保留生育功能的同时可有效缓解临床症状。手术方式有:①传统阴道斜隔切除术,适用于有性生活女性,可完全切除阴道斜隔,不易复发或形成粘连;②宫腔镜下阴道斜隔切除术,适用于无性生活女性,无创且大部分可保留处女膜完整性;③宫腹腔镜联合手术,适用于需了解盆腔情况者,如有盆腔包块考虑卵巢子宫内膜异位囊肿或有盆腔积液者。因宫腔镜具有无创、术后可有效缓解患者临床症状、基本可保留处女膜完整性

等优点,因此是无性生活女性的首选处理方式^[7]。针对宫腔镜手术,手术的时机选择尤为重要,一般选择在月经刚结束阴道斜隔侧积血较多时进行,方便宫腔镜术中定位。若为 II 型阴道斜隔,以斜隔上小孔处作为手术起始点,若为 I 型或 III 型阴道斜隔,以阴道壁最膨出点为手术起始点。宫腔镜电切阴道斜隔常见的并发症为阴道壁、尿道、直肠等周围脏器的损伤,术后形成泌尿生殖道瘘或直肠阴道瘘,因此术中准确定位阴道斜隔尤为重要。针对膨出不明显的阴道斜隔,有以下几种方法辅助定位:①目前有研究^[8]指出术前可通过 MRI 检查判断隔上裂孔或宫颈交通的位置,但准确率有限,根据本院处理 3 例阴道斜隔综合征的经验,术前可通过 MRI 检查判断阴道斜隔下缘最低点距离阴道外口的距离,指导术中对斜隔起始点的寻找(图 5A),由斜隔起始部位向上寻找最膨出处,对术中定位更有意义;②术中向斜隔侧注射亚甲蓝稀释液,一方面可使斜隔侧膨出,另一方面若斜隔上有宫腔镜检查未发现的小孔,可因亚甲蓝溢出定位;③在超声引导下手术有一定指导意义。通过以上手段可减少因术中定位不准确造成的组织损伤。手术切除斜隔的范围应尽可能大,上缘达斜隔起点处宫颈外口水平,下缘达斜隔最低点阴道壁,尤其下缘应尽可能切除干净,避免月经继续在该处形成积聚,出现月经淋漓不尽症状不能缓解。在切除斜隔上下缘时,应少量多次电切,在尽可能完全切除斜隔的同时不损伤宫颈或阴道壁。术中若下缘残隔切除困难,可在球囊填充指引后切除(图 5B)。阴道斜隔患者宫颈阴道部分常不明显,仅见一宫颈外口(图 5C、D),术中应注意分辨,实施电切前先用检查镜充分观察阴道内结构,检查镜无须扩张宫颈即可进入宫腔,因此有利于术中检查宫颈宫腔。对于宫腔镜术后是否需要填塞球囊或纱布预防粘连说法不一,多数研究仍旧支持保留阴道填塞物 48~72 h 避免术后出现阴道粘连^[9-10],安置球囊的大小视隔后腔大小而定,一般 15~80 mL。但 Fascilla FD 等^[11]提出阴道斜隔综合征宫腔镜手术术中可通过充分电凝阴道斜隔断面使黏膜回缩,术后无须安置填塞物,在术后 4~8 周宫腔镜诊断性检查及随访时并未出现阴道粘连的情况,因此手术可在日间病房进行,缩短患者住院时间。

另外,阴道斜隔综合征患者常有阴道脓性分泌物、斜隔侧阴道积液、盆腔炎、盆腔脓肿形成等^[12]。若术前未进行良好阴道准备,术后有发生严重慢性盆腔痛、盆腔粘连及盆腔脓肿的可能^[13]。手术经阴道进行,良好的阴道术前准备可大大减小术后感染概率,减少患者远期并发症的发生。但目前的研究及报道鲜有提及无性生活女性术前阴道准备情况。部分研究^[14]指出可用石蜡润滑尿管插入阴道,用 0.5% 碘伏液 20~30 mL 冲洗阴道 5~6 次,2 次/d,边冲洗边转动尿管以达到冲洗目的。但就诊患者常有儿童期或青春期无性生活女性,因尿管直径相对较粗,常引起患者不适感及恐惧情绪,并非最佳的术前准备方案。在本院就诊的 3 例患者均为无性生活女



A. 箭头所指处为斜隔与阴道交界,箭头上方为膨出斜隔,下方为阴道皱壁

B. 球囊指引下电切斜隔下缘

C. 正常侧宫颈外口

D. 斜隔侧宫颈外口

图 5 宫腔镜术中结构分辨

性,术前均采用静脉输液细管冲洗阴道,细管直径约 2 mm,长度约 25 cm,去除前方钢针针头,插入阴道患者无明显不适感,且因口径更小,冲洗压力更强,对阴道冲洗作用更强,每日仅需 1 次冲洗,2~3 d 后再行宫腔镜手术,术后无一例发生感染。

综上所述,因阴道斜隔综合征寻求治疗的无性生活女性,宫腔镜是首选的手术方式,具有无创、不损伤处女膜、术后症状改善明显的优点。一旦诊断应及时手术,避免感染、积液对患者产生远期不利影响。术中应充分分辨阴道内结构,避免盲目电切引起的副损伤。重视无性生活女性宫腔镜术前阴道准备可减小患者术后感染概率,选择合适的冲洗工具可大大减轻患者不适感、减小阴道冲洗对患者带来的生理及心理的不良影响。

参 考 文 献

- [1] Gholoum S, Puligandla PS, Hui T, et al. Management and outcome of patients with combined vaginal septum, bifid uterus, and ipsilateral renal agenesis (Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome)[J]. J Pediatr Surg, 2006, 41(5): 987-992.
- [2] Mittal R. Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome[J]. J Obstet Gynaecol India, 2016, 66(2): 128-130.
- [3] Kabiri D, Arzy Y, Hants Y. Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome: uterus didelphys and obstructed hemivagina with unilateral renal agenesis[J]. Isr Med Assoc J, 2013, 15(1): 66.
- [4] 孟戈, 段华, 马晓黎. 女性生殖道畸形的病因学研究现状[J]. 国际生殖健康/计划生育杂志, 2020, 39(4): 341-344.
- [5] Meng G, Duan H, Ma XL. Research progress in etiology of female genital tract malformation[J]. J Int Reproduct Health/Family Plan, 2020, 39(4): 341-344.
- [6] 朱兰, 郎景和, 宋磊, 等. 关于阴道斜隔综合征、MRKH 综合征和阴道闭锁诊治的中国专家共识[J]. 中华妇产科杂志, 2018, 53(1): 35-42.
- [7] Zhu L, Lang JH, Song L, et al. Chinese expert consensus on diagnosis and treatment of vaginal oblique septum syndrome, MRKH syndrome and vaginal atresia[J]. Chin J Obstet Gynecol, 2018, 53(1): 35-42.
- [8] Liu M, Zhang L, Xia Y, et al. New consideration of Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome diagnosed by ultrasound[J]. J Ultrasound Med, 2021, 40(9): 1893-1900.
- [9] Xu B, Xue M, Xu DB. Hysteroscopic management of an oblique vaginal septum in a virgin girl with a rare variant of Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome[J]. J Minim Invasive Gynecol, 2015, 22(1): 7.
- [10] Zhang H, Ning G, Fu C, et al. Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome: diverse presentations and diagnosis on MRI[J]. Clin Radiol, 2020, 75(6): 480.e17-480.e25.
- [11] 朱松楠, 朱颖军. 阴道斜隔综合征的诊断与治疗[J]. 国际妇产科学杂志, 2017, 44(3): 262-264, 270.
- [12] Zhu SN, Zhu YJ. Diagnosis and treatment of oblique vaginal septum syndrome[J]. J Int Obstet Gynecol, 2017, 44(3): 262-264, 270.
- [13] Wang JH, Zhu L, Lang JH, et al. Clinical characteristics and treatment of Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome[J]. Arch Gynecol Obstet, 2014, 290(5): 947-950.
- [14] Fascilla FD, Olivieri C, Cannone R, et al. In-office hysteroscopic treatment of Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome: a case series[J]. J Minim Invasive Gynecol, 2020, 27(7): 1640-1645.
- [15] Jung EJ, Cho MH, Kim DH, et al. Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome: an unusual presentation with pyocolpos[J]. Obstet Gynecol Sci, 2017, 60(4): 374-377.
- [16] Meneses AD, Filho WMNE, Raulino DMR, et al. Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome with ureteric remnant abscess managed laparoscopically: a case report[J]. Oman Med J, 2017, 32(2): 157-160.
- [17] 郑智慧, 孙莉颖, 宋泽南, 等. 7 例阴道斜隔综合征患儿的围术期护理[J]. 浙江医学, 2019, 41(10): 1078-1079, 1086.
- [18] Zheng ZH, Sun LY, Song ZN, et al. Perioperative nursing care of 7 children with oblique vaginal septum syndrome[J]. Zhejiang Med J, 2019, 41(10): 1078-1079, 1086.

(责任编辑: 冉明会)