

精索海绵状血管瘤 1 例报告并文献复习

廖乃凯¹ 俞建军¹ 陈嵘¹ 宋鲁杰¹ 李超¹ 谢敏凯¹

[摘要] 目的:探讨精索海绵状血管瘤的临床特征及诊治方法。方法:回顾性分析 1 例精索海绵状血管瘤病例临床资料并检索 MEDLINE 和 CBM 数据库中相关文献进行复习。结果:患者行右侧精索肿块切除术,术中行冷冻病理检查示精索海绵状血管瘤,术后随访 3 个月无复发。文献报道精索海绵状血管瘤 8 例,其中国内有 6 例报道。结论:精索海绵状血管瘤是一种罕见的精索良性肿瘤,B 超及 MRI 检查对其诊断具有一定临床价值,手术切除是主要治疗方法,预后良好,极少复发。

[关键词] 海绵状血管瘤;精索;肿瘤

[中图分类号] R737.11 **[文献标识码]** A **[文章编号]** 1001-1420(2012)08-0622-03

Cavernous hemangioma of spermatic cord: One case report and literature review

LIAO Naikai YU Jianjun CHEN Rong SONG Lujie LI Chao XIE Minkai

(Department of Urology, the Affiliated Hospital of Shanghai JiaoTong University, Shanghai Sixth People's Hospital, Shanghai, 200233, China)

Corresponding author: YU Jianjun, E-mail: ycx917@126.com

Abstract Objective: To evaluate the diagnosis and treatment of spermatic cord cavernous hemangioma. **Methods:** Retrospective analysis of the clinical data of cavernous hemangioma was made, and retrieve relevant literature in the MEDLINE and CBM database were reviewed. **Results:** Local excision of the tumor was performed. And pathologically diagnosed was cavernous hemangioma. No relapse was found during 3 months follow up after the operation. A total of 8 cases of spermatic cord cavernous hemangioma were identified through the literature retrieval and 6 of them were presented in our country. **Conclusions:** Cavernous hemangioma of the spermatic cord was extremely rare benign tumor. Ultrasonography and MRI were helpful in the preoperative evaluation. Surgical excision was probably the best effective option for the treatment of this paratesticular tumour.

Key words cavernous hemangioma; spermatic cord; tumour

血管瘤是由分化成熟的血管所构成的良性肿瘤或血管畸形,可以发生在身体任何部位,以皮肤为多见,一般分为毛细血管瘤、海绵状血管瘤、蔓状血管瘤和混合型血管瘤^[1]。海绵状血管瘤好发于颜面部,四肢、躯干及内脏次之,泌尿生殖系统发病率较少,发生于精索内海绵状血管瘤尤其罕见,目前国内报道不足 10 例^[2],本科收治 1 例,现报告如下并结合文献资料进行分析。

1 资料与方法

1.1 临床资料

患者,男,53 岁。因右侧精索发现无痛性包块 3 个月,以“右侧精索肿块”于 2011 年 3 月入院。患者于入院前 3 个月晨起时无意中发右侧阴囊内可触及一柔软包块,未感特殊不适。体检:右侧阴囊内可触及一约 1 cm×1 cm 包块,质地稍硬,表面光滑,边界清楚,活动度差,无触痛。B 超提示:右侧精索内—1.2 cm×1.0 cm 低回声结节,边界尚清,似可见包膜,外形规则,内部回声均匀,仅见少量血流信号(图 1)。实验室检查:血、尿、粪常规

检查及生化检查正常,胸片检查未见明显异常。

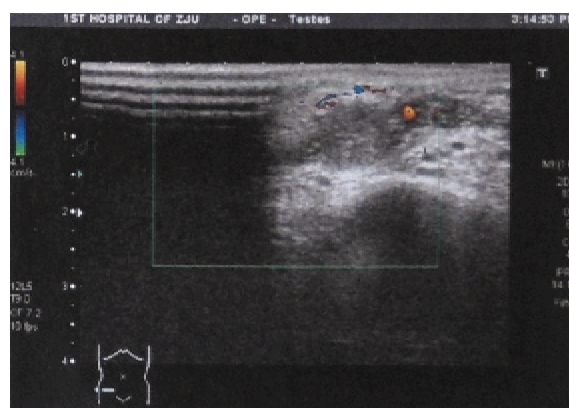


图 1 右侧精索彩色多普勒超声图像

1.2 治疗方法

患者于 2011 年 3 月 10 日在腰麻下行右侧精索肿块局部切除术,行右侧阴囊近右侧腹股沟处切口,长约 2 cm,术中发现肿块位于精索之上,大小约 1 cm×1 cm,与睾丸、附睾及腹膜无明显粘连,周围血运丰富,与精索血管及输精管相连,术中将肿块完整切除并送冷冻病理检查。

¹上海交通大学附属第六人民医院泌尿外科(上海,200233)
通信作者:俞建军, E-mail: ycx917@126.com

2 结果

术后 3 天内应用抗生素预防感染,术后 7 天伤口缝线自行脱落,切口愈合良好。术后病理诊断:精索海绵状血管瘤。定期随访 3 个月无复发。

3 讨论

血管瘤属脉管瘤的一种,是由分化成熟的血管构成的良性肿瘤或血管畸形,占软组织良性肿瘤的 7%。血管瘤多为先天性,常见于儿童,多位于皮肤和肝脏,其次位于小脑、眼球、膀胱、尿道、前列腺、头颅等,目前其病因尚不十分明确^[1~3]。有作者认为它是一种先天性疾病,是胚胎发育过程中,单能性血管干细胞停止向正常的血管上皮细胞分化,小动、静脉形成障碍而产生动静脉畸形,病变进一步累及毛细血管而发展为血管瘤。也有人认为血管瘤的发生起于体细胞突变,进而引起血管内皮生长因子或其受体调节失常,使血管内皮细胞过度增生所致^[4]。根据各类血管瘤的临床表现、病理组织特点和生物学特性,可将其分为毛细血管瘤、海绵状血管瘤、蔓状血管瘤和混合型血管瘤。其中海绵状血管瘤是由小静脉和脂肪组织构成,它可以独立存在,也可以作为全身血管瘤的一部分,还有部分患者与先天性疾病如 Klippel-Trenaunay 综合征或 Sturge-Weber 综合征有关,本病在儿童中发病率

很高,多发生于颜面部,一般很少累及泌尿生殖道,发生于精索内海绵状血管瘤尤其罕见^[3,5]。

精索由睾丸动脉、静脉、淋巴管、神经、提睾肌和输精管组成,借疏松结缔组织和少量平滑肌纤维包裹成圆索状,自睾丸上缘经腹股沟皮下环、腹股沟管至腹环,长为 11~15 cm,直径约 0.5 cm^[6]。精索内常见病变有精索静脉曲张、精索全结构病变、精索鞘膜病变和精索肿瘤等,其中精索肿瘤 90% 出现在阴囊内精索部,与睾丸、附睾分界清晰,大约 70% 为良性,原发精索恶性肿瘤发病率低,恶性度高,容易转移,可由睾丸淋巴管沿主动脉和下腔静脉转移至腹膜后淋巴结,多为横纹肌肉瘤,另外还有脂肪肉瘤、纤维肉瘤、平滑肌肉瘤和恶性纤维组织细胞瘤等。精索转移癌少见,可来自胃肠道肿瘤或泌尿生殖系统肿瘤。良性肿瘤中以脂肪瘤最多见,起源于腹股沟内环浆膜下的脂肪组织或精索脂肪组织,生长缓慢,质地柔软,其余良性肿瘤如黏液瘤、平滑肌瘤、神经纤维瘤和血管瘤等均极少见^[7,8]。精索海绵状血管瘤是一种罕见的精索良性肿瘤,截至目前为止,国内外文献报道不足 10 例(表 1),其中国内仅有 6 例报告,最早由尹国年等于 1957 年报道左侧精索血管瘤 1 例,并且无明确的组织学分类^[9]。

表 1 精索海绵状血管瘤

作者	年龄/岁	部位	术前诊断	治疗方法	术后病理	随访结果
尹国年等 1957	54	左侧阴囊内	精索良性肿瘤	手术切除	血管瘤	未随访
唐明清等 1986	3	右侧阴囊内	阴囊内肿块	手术切除	海绵状血管瘤	未随访
苏鸿学等 1995	25	右侧阴囊上方	精索鞘膜积液	手术切除	海绵状血管瘤	未随访
刘忠理等 2006	4	左侧阴囊及腹股沟区	精索鞘膜积液	左侧精索鞘膜积液鞘状突高位结扎术	精索鞘膜积液合并海绵状血管瘤	未随访
马胜利等 2007	19	左侧阴囊上方	精索恶性肿瘤	手术切除+淋巴结清扫	海绵状血管瘤	未随访
张长征等 2009	58	左侧阴囊内	精索肿瘤	手术切除	海绵状血管瘤	1 年无复发
PAVEL 等 2002	32	左侧阴囊内	阴囊内肿块	左侧睾丸切除	海绵状血管瘤	未随访
YONG 等 2006	11	右侧阴囊内	阴囊内肿块	右侧睾丸切除	海绵状血管瘤	未随访

精索海绵状血管瘤病例稀少,文献报道通常表现为腹股沟区或阴囊内无痛性肿块,生长缓慢,无全身症状,可发生于左侧或右侧,接近精索并与精索静脉相接,位于皮下环与睾丸之间,为富血管呈紫红色有被膜的肿瘤^[9]。由于该病部位特殊,临床上少见,加之疾病本身变化多端,有时肿块可静止多年而突然增大,症状与其他精索肿瘤相似,所以临床上极易误诊。国内文献报道的 6 例患者,5 例患者术前均被诊断为精索良性肿瘤或精索鞘膜积液,术后见肿物断面呈网状血管交错,无实性组织,病理检查为海绵状血管瘤。马胜利等报道的 1 例患者因左侧精索肿块为实性且质地硬,术前考虑为“精索恶性肿瘤”,术中见肿块表面血管迂曲曲张,

断面暗红色,粗糙有沙粒感,对其性质更是难以确定,以至误认为恶性而行淋巴结清扫。由于该病多发生于阴囊内精索部,若与睾丸及其周边组织分界不清,则极易与睾丸肿瘤混淆,国外文献报道的 2 例患者就是因为肿块位于阴囊内,症状与睾丸肿瘤相似,不排除睾丸恶性肿瘤可能而行患侧睾丸切除术^[2,10]。本例患者因发现右侧精索无痛性包块 3 个月入院,未感特殊不适,不排除精索恶性肿瘤可能,因此对其进行正确的诊断与鉴别诊断具有重要的临床意义。

由于精索海绵状血管瘤无特异性临床表现,各项实验室检查多无明显异常,故术前明确诊断较为困难。但对>1 cm 的团块状血管瘤,彩超能显示

组织器官的解剖结构异常,了解血流分布及流速等情况,故对该病的诊断有一定临床价值^[1]。正常精索直径<1.0 cm,回声相对增强,血流信号少,当精索发生病变时,超声可见精索增粗,血流信号明显增多,精索区二维图像发生改变,如扭曲状、蜂窝状管道结构、回声强弱相间不均质、瘤体样回声及囊样无回声等。其中精索恶性肿瘤多表现为精索内实质性强回声团块,内部回声不均匀,包块周边及包块内可见少许血流信号,后方可有声衰减。而精索海绵状血管瘤则主要表现为精索内强回声的实质信号,CDFI可见肿块内较丰富的红蓝色彩色血流信号^[11,12]。本例患者B超显示右侧精索内一低回声结节,边界尚清,外形规则,内部回声均匀,肿块内仅见少量血流信号,这与典型精索海绵状血管瘤超声表现不符,不能排除精索恶性肿瘤可能,且B超受操作者手法影响较大,对于深部软组织内病变的诊断仍有一定困难。与超声相比,CT诊断血管瘤并无明显优势,而软组织血管瘤MRI、彩色多普勒超声具有共同的形态学特征,而且MRI具有优良的软组织分辨力,可以多方位成像,能在一定程度上反映软组织血管瘤病理组织学的改变,并能显示瘤内特征性的脉管及血管成分间的纤维、脂肪,以及其内的血栓或合并瘤内出血,可在一定程度上对软组织血管瘤进行病理分型^[13],但由于精索海绵状血管瘤病例稀少,目前尚无相关研究报告。病理检查是临床诊断的金标准,但对于怀疑精索恶性肿瘤的病例临床上不应推荐穿刺细胞学检查,如进行穿刺细胞学检查,可能造成继发性肿瘤播散和转移,故临床确诊常依赖术后病理检查。

根据血管瘤的部位、类别、大小可选用药物治疗、物理治疗和手术治疗。药物治疗包括激素治疗、干扰素治疗、外搽三苯氧胺、局部注射平阳霉素或异丙嗪等;物理治疗包括激光疗法、硬化栓塞治疗、放射疗法、微波疗法、直流电铜针疗法等;手术治疗包括局部切除和分次多部位环扎术等^[14,15]。其中激光治疗一般用于肿瘤成片状、无明显团块或结节的血管瘤(多属毛细血管瘤),否则容易造成难以控制的出血,且肿瘤不易完全切除。而肿瘤局部注射硬化剂、冷冻及放射治疗等效果不肯定,现已很少采用^[16]。由于血管瘤手术容易出血,所以对大部分血管瘤,直视下行肿瘤切除是首选治疗方法,只要手术切除范围充分,局部很少复发。精索海绵状血管瘤治疗方法由于病例数有限,无成熟经验可寻。本例患者因术前诊断尚不明确,不排除精索恶性肿瘤可能,故术中行冷冻病理检查以明确诊断,术后随访3个月无复发。总之,精索海绵状血管瘤是一种良性病变,只要及时诊断、正确处理,预后良好,极少复发。

参考文献

- [1] GRIFFIN N, KHAN N, THOMAS J M, et al. The radiological manifestations of intramuscular haemangiomas in adults; magnetic resonance imaging, computed tomography and ultrasound appearances[J]. *Skeletal Radiol*, 2007, 36(11): 1051-1059.
- [2] LIOKUMOVICH P, HERBERT M, SANDBANK J, et al. Cavernous hemangioma of spermatic cord; report of a case with immunohistochemical study[J]. *Arch Pathol Lab Med*, 2002, 126: 357-358.
- [3] FISHMAN S J, MULLIKEN J B. Hemangiomas and vascular malformations of infancy and childhood[J]. *Pediatr Clin North Am*, 1993, 40(6): 1177-1200.
- [4] JAHN H, NISSEN H M. Haemangioma of the urinary tract; review of the literature[J]. *Br J Urol*, 1991, 68: 113-117.
- [5] BISSADA N K, FRANGOS D N, FERENTZI C. Management of extensive urethral hemangiomas with endoscopic sclerotherapy; case report[J]. *J Urol*, 1994, 151: 1015-1016.
- [6] ERGAN S, BRAN T, SOYKA A, et al. Angio architecture of the human spermatic cord[J]. *Cell Tissue Res*, 1997, 288: 391-398.
- [7] MALIZIA M, BRUNOCILLA E, BERTACCINI A, et al. Liposarcoma of the spermatic-cord; description of two clinical cases and review of the literature[J]. *Arch Ital Urol Androl*, 2005, 77(2): 115-157.
- [8] ISHIBASHI K, CHIKA N, MIYAZAKI T, et al. Spermatic cord metastasis from colon cancer; report of a case[J]. *Surg Today*, 2011, 41(3): 418-421.
- [9] 尹国年, 张望和. 精索血管瘤[J]. *山西医学杂志*. 1958, 3(1): 32-33.
- [10] YONG SUN JEON, SOON GU CHO, WON HONG KIM, et al. Cavernous haemangioma of the spermatic cord in a child[J]. *Pediatr Radiol*, 2006, 36: 1323-1325.
- [11] RIZVI S A, AHMAD I, SIDDIQUI M A, et al. Role of color Doppler ultrasonography in evaluation of scrotal swellings; pattern of disease in 120 patients with review of literature[J]. *Urol J*, 2011, 8(1): 60-65.
- [12] COLEMAN J, BRENNAN M F, ALEKTIAR K, et al. Adult spermatic cord sarcomas; management and results[J]. *Ann Surg Oncol*, 2003, 10: 669-675.
- [13] STEIN-WEXLER R. MR imaging of soft tissue masses in children[J]. *Magn Reson Imaging Clin N Am*, 2009, 17(3): 489-507.
- [14] KHAITAN A, HEMAL A K. Urethral hemangioma; laser treatment[J]. *Int Urol Nephrol*, 2000, 32: 285-286.
- [15] 陈志强, 赵建国, 杨为民, 等. 尿道血管瘤的诊断和治疗[J]. *临床泌尿外科杂志*, 2001, 16(2): 140-141.
- [16] KHAITAN A, HEMAL A K. Urethral hemangioma; laser treatment[J]. *Int Urol Nephrol*, 2000, 32(2): 285-286.