

膀胱脉管瘤 1 例*

保文斌¹ 黄宇¹ 王海峰¹ 王剑松¹

[摘要] 膀胱脉管瘤是一种较为罕见的膀胱良性肿瘤,临床表现为间歇性无痛性肉眼血尿,部分患者可合并膀胱炎症状。它的影像学检查缺乏特异性,最终确诊需要靠病理学检查。目前手术治疗被认为是治疗膀胱脉管瘤最有效的方式。现报道昆明医科大学第二附属医院诊治的 1 例膀胱脉管瘤患者。

[关键词] 膀胱肿瘤;脉管瘤;膀胱占位;膀胱部分切除术

DOI:10.13201/j.issn.1001-1420.2022.06.018

[中图分类号] R737.14 [文献标志码] D

A case of bladder hemolymphangioma

BAO Wenbin HUANG Yu WANG Haifeng WANG Jiansong

(Department of Urology, Second Affiliated Hospital of Kunming Medical University, Kunming, 650101, China)

Corresponding author: WANG Jiansong, E-mail: jiansongwang@126.com

Summary Bladder hemolymphangioma is a rare benign tumor of the bladder. The clinical manifestation is intermittent painless gross hematuria and cystitis in some patients. Its imaging examination lacks specificity, so final diagnosis depends on pathological examination. At present, surgical treatment is considered to be the most effective way to treat bladder hemolymphangioma. A case of bladder hemolymphangioma diagnosed and treated in the Second Affiliated Hospital of Kunming Medical University is reported.

Key words bladder tumor; hemolymphangioma; bladder mass; partial cystectomy

1 临床资料

患者,女,30岁,因“体检发现膀胱占位性病变 1 周余”入院。患者否认既往出现无痛性肉眼血尿,无排尿困难、尿频、尿急及腰骶部疼痛,2 年前曾有车祸伤。入院后行腹部超声检查提示膀胱占位性病变,大小约 5.0 cm×7.0 cm×5.0 cm。行盆腔 CT 平扫及增强提示:膀胱壁厚,腔内斑片状软组织密度影并点状钙化,不均匀强化,大小约 5.5 cm×6.7 cm×5.0 cm。盆腔 MRI 显示膀胱右前上壁见一类圆形稍长 T1 稍短 T2 混杂信号影,大小约 6.2 cm×6.9 cm×5.2 cm,边界尚清,部分向上超出膀胱壁,DWI 呈不均匀稍高信号,ADC 呈不均匀低信号,增强呈轻度强化(图 1),提示性质多为良性,纤维或平滑肌源性可能,子宫内膜异位症待排。膀胱镜检查发现膀胱右前壁巨大菜花样肿物,部分呈水草样,广基底,两侧输尿管开口正常,周围膀胱黏膜呈炎症反应,部分滤泡样改变,取活检提示良性肿瘤。根据患者术前相关检查,肿瘤位于右前壁,范围较广且浸润膀胱壁肌层,未行经

尿道膀胱肿物电切术,行腹腔镜下膀胱部分切除术,术中可见膀胱内顶壁巨大菜花状占位性病变,大小约 6.0 cm×7.0 cm×5.0 cm,距肿物 1 cm 处将肿物切除,止血,膀胱切口全层缝合,留置 F20 三腔尿管及术区负压引流 1 根。术后病理诊断:膀胱脉管瘤,由海绵状淋巴管瘤和血管瘤成分混合构成(图 2);免疫组织化学:CD34(+),CD31(+),MC(-),CR(-),CK7(-)。术后患者随访 1 年余,未见明显异常。

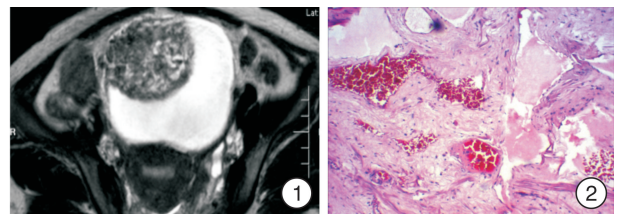


图 1 盆腔 MRI 图像(T2WI); 图 2 活组织病理(苏木精-伊红染色×100)

*基金项目:国家自然科学基金项目资助(No:81860452,82060464)

¹昆明医科大学第二附属医院泌尿外科(昆明,650101)

通信作者:王剑松,E-mail:jiansongwang@126.com

2 讨论

脉管瘤是血管瘤(hemangioma)和淋巴管瘤(lymphangioma)的合称,亦称血管淋巴管瘤,脉管瘤主要由海绵状淋巴管瘤和血管瘤混合组成,并非真正意义上的肿瘤^[1]。其病因一直被认为是先天性的血管系统畸形^[2],可分为原发性和继发性肿瘤,原发性肿瘤是胚胎发育过程中淋巴管先天性发育异常导致淋巴胚囊与静脉系统连接,引起正常分化的淋巴组织错构导致通路闭塞所致,继发性肿瘤很可能是由于手术或创伤导致的淋巴回流障碍和淋巴管损伤所致^[3]。本例患者自诉有车祸伤史,当时无肉眼血尿及排尿困难,既往腹部超声检查未发现异常,因此,可认为该病为继发性膀胱脉管瘤。脉管瘤好发于头部和颈部,很少发生在脾脏、小肠、眼眶、胰腺、阑尾或网膜^[4-5]。更少发生于膀胱,膀胱脉管瘤是极为罕见的膀胱良性肿瘤。淋巴管和血管内皮细胞的协同依赖性证实了淋巴管和血管内皮细胞来源于共同的干细胞^[6]。D2-40在淋巴管内皮细胞中特异性表达,CD34和CD31在血管内皮细胞中特异性表达^[7-8]。这位患者的组织病理学免疫染色CD34和CD31呈阳性,确认为脉管瘤的诊断。

膀胱脉管瘤早期患者一般无特殊不适,随着肿瘤生长,可逐渐出现间歇性发作性无痛性肉眼血尿,部分患者可合并膀胱炎,伴有膀胱刺激症状。血尿严重程度多与肿瘤大小无关。B超检查可发现早期膀胱脉管瘤,多可探及形态不规则囊状回声,边界不清,内可见管状无回声区,但需要结合进一步影像检查,如CT平扫增强,可见膀胱腔内低密度软组织影,增强不均匀强化,可见囊管状结构;CT表现主要与肿瘤内血管及淋巴管成分多少有关,以淋巴管成分为主,可表现为迂曲增粗囊状结构,密度低、边界清、无明显强化;而以血管成分为主,可见增强早期边缘欠连续条状或结节状明显强化,静脉期及延迟期呈渐进性强化^[9]。脉管瘤在CT或MRI上的影像学表现没有特异性,因为它是多个组织的混合体。血管淋巴管瘤的囊性成分在增强CT上不显示强化,囊壁可无强化、轻度强化或不均匀强化^[3,10-11]。血管淋巴管瘤增强CT表现多种多样,诊断困难。MRI可明确肿瘤与正常组织边界,显示出膀胱壁层浸润程度,有助于进一步判断肿瘤的良恶性,可为后期手术方案制定提供帮助。然而一项报告认为与CT和MRI相比,⁶⁸Ga-NEB PET/CT可能提供更准确和全面的淋巴系统紊乱信息,当怀疑淋巴相关疾病时,应推荐行⁶⁸Ga-NEB PET/CT检查^[12]。膀胱镜检查可对肿瘤大小、颜色及边界直接观察,必要时可取活检,明确肿

瘤良恶性,指导手术方案制定,但有报告指出,术前活检严重可导致肿瘤大出血,引起膀胱填塞甚至休克^[13],因此应根据患者具体情况决定,做好必要预防。膀胱脉管瘤的鉴别诊断也非常重要,膀胱血管瘤及尿路上皮肿瘤主要临床表现也是反复无痛性肉眼血尿,单从临床表现无法明确,所以必要的影像学及膀胱镜检查必不可少,总之,膀胱脉管瘤的确诊依据主要依靠病理学检查。

虽然脉管瘤是一种良性肿瘤,但仍有可能侵犯周围器官,治疗后复发^[14]。手术治疗被认为是治疗脉管瘤最有效的方法,切除范围应包括疑似侵犯的周围组织^[15]。具体手术方式需要根据肿瘤的大小、部位、数目以及对膀胱壁侵犯程度来选择,若肿瘤处于早期阶段,局限于膀胱黏膜或浅肌层,单发可采取经尿道膀胱肿物电切术;若肿瘤瘤体较大,基底较宽且侵犯膀胱壁层或位置特殊不能行电切,建议行膀胱部分切除术。据报道,肿瘤完全切除后复发率为10%~27%,而部分切除后复发率为50%~100%^[16]。另外有研究显示,腹腔镜膀胱部分切除术具有创伤小、出血少、手术安全、疗效确切等优点,可作为治疗膀胱良性肿瘤、膀胱异物及部分膀胱恶性肿瘤的首选手术方法^[17]。而非手术治疗效果不如手术治疗,如放射治疗、激光治疗、注射固化剂和冷冻治疗^[18]。本例患者因肿瘤较大,侵犯全壁层,给予腹腔镜下膀胱部分切除术,术后3个月、6个月后复查腹盆CT及膀胱镜未发现明显异常,目前还在随访。查阅相关文献,目前无相关证据表明膀胱脉管瘤患者术后接受膀胱灌注化疗可防止肿瘤复发,本例患者未行膀胱灌注化疗。总之,膀胱脉管瘤的诊治需要通过综合性检查评估,根据具体病情选择合适手术方式。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

- [1] 张江华,尚培中,王金,等.腹腔镜手术治疗小网膜及肝十二指肠韧带弥漫性脉管瘤一例[J/OL].中华普外科手术学杂志(电子版),2018,12(1):89-90.
- [2] Balderramo DC, Di Tada C, de Ditter AB, et al. Hemolymphangioma of the pancreas: case report and review of the literature[J]. *Pancreas*, 2003, 27(2): 197-199.
- [3] Figueroa RM, Lopez GJ, Servin TE, et al. Pancreatic hemolymphangioma[J]. *JOP*, 2014, 15(4): 399-402.
- [4] Sharpe AN, Klys H, Choudhary M. Hemolymphangioma of the broad ligament: A differential diagnosis for an ovarian cyst[J]. *J Obstet Gynaecol*, 2016, 36(8): 971-973.
- [5] Pandey S, Fan M, Chang D, et al. Hemolymphangioma of Greater Omentum: A Rare Case Report[J]. *Medicine(Baltimore)*, 2016, 95(17): e3508.

- [6] Sonne SB, Herlihy AS, Høi-Hansen CE, et al. Identity of M2A(D2-40) antigen and gp36 (Aggrus, T1A-2, podoplanin) in human developing testis, testicular carcinoma in situ and germ-cell tumours [J]. *Virchows Arch*, 2006, 449(2): 200-206.
- [7] Ohsawa M, Kohashi T, Hihara J, et al. A rare case of retroperitoneal hemolymphangioma [J]. *Int J Surg Case Rep*, 2018, 51: 107-111.
- [8] Mao CP, Jin YF, Yang QX, et al. Radiographic findings of hemolymphangioma in four patients: A case report [J]. *Oncol Lett*, 2018, 15(1): 69-74.
- [9] 石昌龙, 宋永胜. 膀胱脉管瘤 1 例报告 [J]. *现代泌尿外科杂志*, 2018, 23(10): 802-803.
- [10] Pan L, Jian-Bo G, Javier P. CT findings and clinical features of pancreatic hemolymphangioma: a case report and review of the literature [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2015, 94(3): e437.
- [11] Sun LF, Ye HL, Zhou QY, et al. A giant hemolymphangioma of the pancreas in a 20-year-old girl: a report of one case and review of the literature [J]. *World J Surg Oncol*, 2009, 7: 31.
- [12] Hou G, Jiang Y, Jian S, et al. Hemolymphangioma involving bones and bladder detected on 68Ga-NEB PET/CT: A rare case report [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2019, 98(15): e15213.
- [13] 庄桂武, 陈波特, 吴实坚, 等. 膀胱血管瘤 1 例报告 [J]. *现代泌尿外科杂志*, 2015, (3): 206-206.
- [14] Kida A, Matsuda K, Noda Y. Endoscopic metallic stenting by double-balloon enteroscopy and its over-tube for malignant gastrointestinal obstruction as palliative treatment [J]. *Dig Endosc*, 2013, 25 (5): 552-553.
- [15] Traoré BZ, Serran K, Saoud O, et al. A rare cause of spontaneous hemoperitoneum in adults: ruptured cystic hemolymphangioma [J]. *Pan Afr Med J*, 2017, 26: 8.
- [16] Li Y, Pang X, Yang H, et al. Hemolymphangioma of the waist: A case report and review of the literature [J]. *Oncol Lett*, 2015, 9(6): 2629-2632.
- [17] 熊丙建, 汪婷, 陶光晶, 余义, 江铎. 腹腔镜膀胱部分切除术在治疗膀胱肿瘤和膀胱异物的应用 [J]. *临床泌尿外科杂志*, 2019, 34(9): 713-716, 720.
- [18] Blanco Velasco G, Tun Abraham A, Hernández Mondragón O, et al. Hemolymphangioma as a cause of overt obscure gastrointestinal bleeding: a case report [J]. *Rev Esp Enferm Dig*, 2017, 109(3): 213-214.

(收稿日期: 2021-01-12)

(上接第 485 页)

- [22] Craig WD, Wagner BJ, Travis MD. Pyelonephritis: radiologic-pathologic review [J]. *Radiographics*, 2008, 28 (1): 255-277; quiz 327-328.
- [23] 陈植, 刘小荣, 孟群, 等. 儿童急性局灶性细菌性肾炎的临床特点 [J]. *中华实用儿科临床杂志*, 2017, 32 (17): 1343-1345.
- [24] Sieger N, Kyriazis I, Schaudinn A, et al. Acute Focal Bacterial Nephritis Can Lead to Unnecessary Invasive Procedures: A Report of Three Cases [J]. *Urol Int*, 2017, 99(2): 245-248.
- [25] 闫喆, 王春祥, 赵滨, 等. 儿童急性局灶性细菌性肾炎的 DWI 诊断价值 [J]. *国际放射医学核医学杂志*, 2018, 42(4): 332-336.

(收稿日期: 2021-01-14)