

盆腹腔播散性平滑肌瘤病1例

宋召倩¹, 周 静², 王长河^{2*}

¹济宁医学院临床医学院, 山东 济宁

²济宁市第一人民医院, 山东 济宁

收稿日期: 2022年11月14日; 录用日期: 2022年12月14日; 发布日期: 2022年12月21日

摘 要

盆腹腔播散性平滑肌瘤病是子宫肌瘤的一种特殊生长方式, 较罕见, 病因尚未明确, 临床症状不典型, 常于查体时偶然发现, 可通过影像学检查进行初步诊断, 金标准为病理诊断, 必要时通过免疫组化做鉴别诊断加以明确, 治疗以手术为主, 应根据患者病情制定个性化治疗方案。通过回顾性分析2021年9月份收治的1例盆腹腔播散性平滑肌瘤病患者的临床资料, 探讨总结该病的发生原因、诊断、治疗及预防。

关键词

盆腹腔, 播散性平滑肌瘤病, 诊断, 治疗, 预防

A Case of Pelvic and Peritoneal Disseminated Leiomyomatosis

Zhaoqian Song¹, Jing Zhou², Changhe Wang^{2*}

¹School of Clinical Medical, Jining Medical University, Jining Shandong

²Jining No. 1 People's Hospital, Jining Shandong

Received: Nov. 14th, 2022; accepted: Dec. 14th, 2022; published: Dec. 21st, 2022

Abstract

Pelvic and peritoneal disseminated leiomyomatosis is a special growth mode of uterine leiomyoma. It is rare, the cause of which is not yet clear, and the clinical symptoms are atypical. It is often found by accident during physical examination. It can be preliminarily diagnosed by imaging examination. The gold standard is pathological diagnosis. If necessary, it can be identified by differential diagnosis through immune histochemistry. The treatment is mainly surgery. Individua-

*通讯作者。

lized treatment plan should be formulated according to the patient's condition. The clinical data of a patient with pelvic and peritoneal disseminated leiomyomatosis admitted in September 2021 were analyzed retrospectively, and the causes, diagnosis, treatment and prevention of the disease were discussed and summarized.

Keywords

Pelvis and Abdomen, Disseminated Leiomyomatosis, Diagnosis, Treatment, Prevention

Copyright © 2022 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 引言

盆腹腔播散性平滑肌瘤病是指盆腹腔弥漫性地出现平滑肌来源的肿瘤，好发生于育龄期有子宫肌瘤史的女性，该病较为罕见，且大部分相关文献均为个案报道。目前该病发生机制尚未完全明确，临床症状不典型，常于查体时偶然发现，治疗方式首选手术治疗。近期本院收治一例既往有过两次子宫肌瘤剔除史的女性出现了盆腹腔播散性平滑肌瘤，现报道如下。

2. 病例资料

患者，女，45岁，因“查体发现盆腔肿物2年余”于2021-09-15入院。2年余前在外院查体发现肝肾之间囊肿，具体不详，直径约5cm，患者无不适症状，定期复查未见明显增大。2年前查体发现盆腔肿物，直径约5cm，此后不定期复查，肿物大小未见明显增长，未治疗。2021-09-13复查腹部彩超显示右肾上方至右侧髂窝至脐部可见大小约25×14.2×8.0cm囊性回声，来源不清。行妇科彩超示子宫多发肌瘤，较大者约2.2×1.9cm，双附件区未见异常回声，盆腔内可见多个囊性回声，较大者约5.4×3.3cm，边界清，形态不规则。行盆腹腔磁共振(图1)示腹盆腔多发囊实性占位，腹膜假性粘液瘤？转移瘤待排，子宫多发小肌瘤。全腹CT(图2，图3)提示盆腔粘液性肿瘤待排，肝周、肝右叶及腹盆腔内多发异常密度，腹膜假性粘液瘤可能，转移待排，子宫多发肌瘤。肿瘤标记物：AFP值为10.8ng/ml(正常值为0~7.02ng/ml)，CA125、HE4、SCC及CA199等均在正常范围。既往史：患者2007年行剖宫产术，术中剔除子宫肌瘤1枚，后肌瘤复发，再次行腹腔镜下子宫肌瘤剔除术。2019年因乳腺癌行右乳腺癌改良根治术，术后予多西他赛、多柔比星脂质体+环磷酰胺化疗6次，后行放疗及靶向治疗(曲妥珠单抗+帕妥珠单抗)，定期复查无复发征象。入院查体：盆腔触及大小约4月余囊实性肿物，质硬，边界欠清，子宫及双附件扪及不清。排除手术禁忌后，于2021-09-22行腹腔镜探查+经腹盆腹腔肿瘤细胞减灭术(子宫及双侧附件及大网膜及盆腹腔腹膜肿物)+肠粘连松解+肝肾多发囊肿切除术，术中可见部分乙状结肠粘连于左侧骨盆腔漏斗韧带及左侧盆腔侧腹膜，部分大网膜粘连于子宫右侧宫角及圆韧带处。子宫如孕3月余大小，表面见多个肌瘤及囊性肿物，肌瘤直径约1.0~5.0cm，囊肿直径约1.0~3.0cm，双侧输卵管浆膜表面及卵巢表面见多个肌瘤样实性肿物及数个囊性肿物，直径约0.5~3.0cm，直肠子宫陷凹直结肠浆膜面、肠系膜、肠浆膜、肝连状韧带偏左侧、盆腹腔腹膜及肝肾隐窝、大网膜见数个实性肌瘤样肿物及囊性肿物，实性肿物直径约0.5~3.0cm，囊性肿物直径约1.0~10.0cm，肝肾隐窝囊肿由肝胆外科医师切除。术中冰冻示：送检输卵管组织及平滑肌组织、子宫及双侧附件：平滑肌瘤可能，宫颈管息肉。术毕盆腹腔

无肉眼残留病灶。术后病理示：盆腹腔病灶、大网膜弥漫性平滑肌瘤病，肿瘤内见较多腺体扩张成囊性，上皮未见异型，免疫组化：Desmin (+)、EMA (+)、H-Caldesmon (+)、CD10 (-)、D2-40 (-)、WT-1 (部分弱+)、CK7 (上皮+)、LCK (上皮+)、Ki-67 (+)约 1%；子宫考虑为弥漫性平滑肌瘤病，浆膜面肿瘤内见较多腺体扩张成囊性，上皮未见异型，增生期样子宫内膜，盆腔肿物为平滑肌瘤病，肿瘤内见较多腺体扩张成囊性，上皮未见异型。术后恢复顺利，未予补充治疗，术后半年复查全腹及盆腔 CT 无异常。此后定期复查，随访至今，无复发征象。



Figure 1. Upper abdominal MRI image (arrow indicates right upper abdominal lesion)

图 1. 上腹部 MRI 图像(箭头指示右上腹病灶)

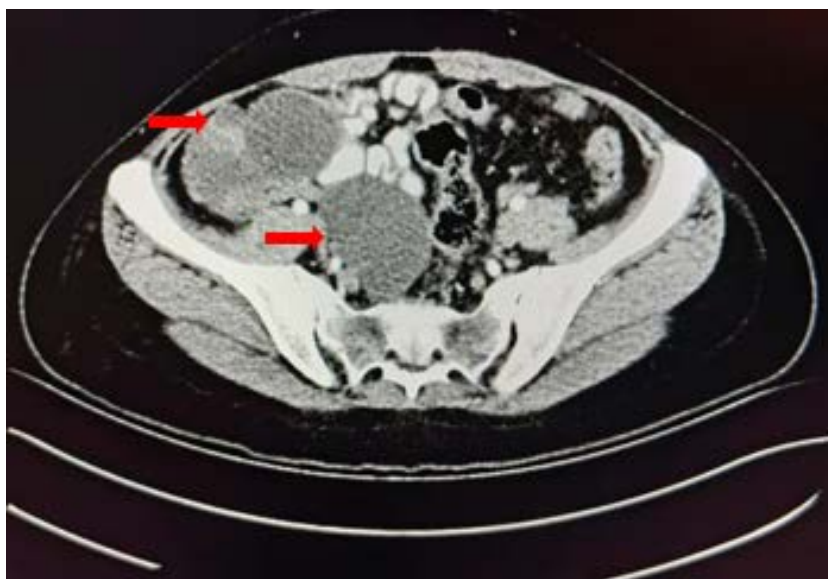


Figure 2. CT image (arrow indicating multiple lesions in abdominal cavity)

图 2. CT 图像(箭头指示腹腔多发病灶)

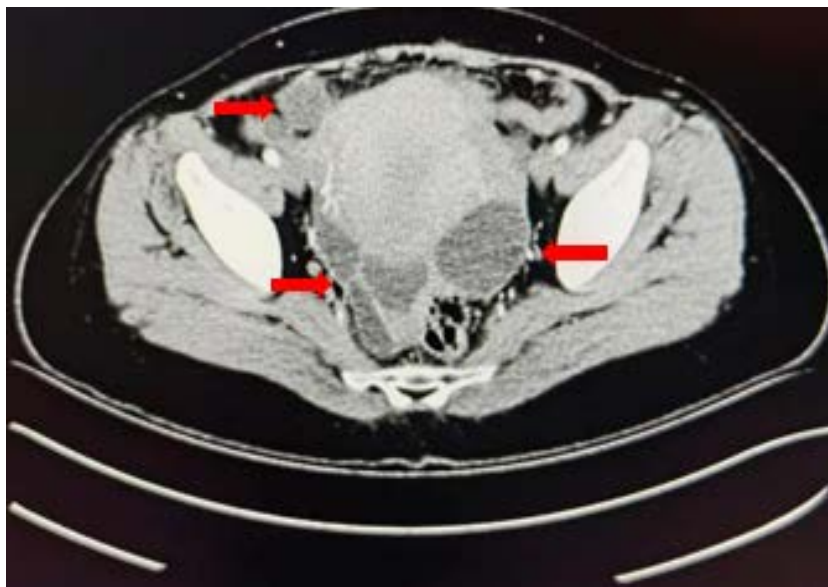


Figure 3. CT image (arrow indicating multiple pelvic lesions)

图 3. CT 图像(箭头指示盆腔多发病灶)

3. 讨论

3.1. 病因

盆腹腔播散性平滑肌瘤病是一种非常罕见的良性病变，以盆腹腔弥漫性出现平滑肌来源的肿瘤为特点[1]，好发生于育龄期有子宫肌瘤史的女性。该病的发生机制不明确，目前研究认为主要有以下几种原因：1) 遗传因素：有研究表明腹膜播散性平滑肌瘤与子宫平滑肌瘤在相同染色体上存在基因的突变[2] [3]，盆腹腔其他部位的肌瘤是否存在同样染色体异常有待于研究，且也有个别病例出现家族聚集情况[4]。2) 雌孕激素因素：盆腹腔腹膜播散性平滑肌瘤结节多表现为 ER、PR 阳性[5]，且大部分患者伴有子宫内膜异位症，考虑其与高雌孕激素有关，而相关文献报道弥漫性子官平滑肌瘤病孕激素受体明显高于正常子宫肌层，而雌激素受体与正常肌层无明显变化，且使用醋酸炔诺酮之后，肿瘤生长迅速，这表明弥漫性子官平滑肌瘤病与雌激素关系不大，主要与孕激素关系较为密切[6]。3) 医源性因素：① 医源性种植。缪玉娟[7]等人报道过 1 例腹腔镜 Troca 孔处播散性平滑肌瘤病，黄帅[8]等人也报道过 1 例腹腔镜下子宫肌瘤剔除、电动粉碎术后腹膜播散性平滑肌瘤病，这 2 例均为使用肌瘤粉碎器后肌瘤碎片引起种植所致。因此使用肌瘤粉碎器可能导致肌瘤碎片发生医源性种植。② 血行播散。李伟大[9]等人报道过 1 例子官良性平滑肌瘤肺转移，在该病例中，患者既往有过子宫肌瘤剔除史，考虑术后平滑肌瘤发生了血行转移，因此有学者认为子宫平滑肌瘤有时会在静脉内形成肿瘤结节，然后转移至盆腔、腹腔等部位，胸腔转移 - 肺部最为常见。本文报道的病例既往有过两次子宫肌瘤剔除手术史，其中一次为腹腔镜手术，胸部 CT 未见明显异常，考虑其发病的主要原因是既往使用肌瘤粉碎器，导致子宫肌瘤碎片种植在盆腹腔腹膜上。

3.2. 诊断

盆腹腔播散性平滑肌瘤病无特异性临床表现，常于查体时偶然发现，需与转移性平滑肌瘤病相鉴别，后者通常是指子宫肌瘤切除术后出现在实质脏器的平滑肌瘤，其中肺为好发部位[10]，另外也需与多发性子宫肌瘤、平滑肌肉瘤、腹膜假性粘液瘤、间质瘤等疾病相鉴别，鉴别方式可通过术前影像学检查及术

后病理诊断。该疾病虽然为良性病变，但是具有恶性肿瘤的弥漫性生长行为，容易造成误诊、漏诊。沈明虹[11]等人做过 5 例腹膜播散性平滑肌瘤病的临床分析，其中 4 例 B 超均表现为实性占位，极易与恶性肿瘤相混淆。因此 B 超检查虽然可以鉴别子宫平滑肌瘤与盆腹腔其他实性肿瘤，但是对于该病的误诊率却极高。而 CT 与 MRI 对肿瘤实性部分增强之后均可以出现与子宫肌层相仿的情况[12]，而且尤其当肌瘤体积较大时，该病在 MRI 上会显示明显的“沼泽湿地征”[13]。因此 CT 与 MRI 不失为一种鉴别方法。且盆腹腔播散性平滑肌瘤病肿瘤标记物大多无异常。该病的金标准仍然为病理诊断，必要时可以通过免疫组化证实肌瘤病变的性质[14]，SMA、结蛋白(Desmin)、钙调素结合蛋白(caldesmon)阳性提示该肿瘤可能为平滑肌来源，Ki67 显示出较低的肿瘤细胞增殖指数，这更加倾向于良性肿瘤行为[15]，宫外病灶 PR、ER(+)提示肌瘤为子宫起源或同源性[16]。本文报道的病例术前 CT 及 MRI 怀疑是腹膜假性粘液瘤，主要因为两者术前影像学检查均可出现盆腹腔均匀低密度病灶，不易鉴别，而结合该患者术后病理及免疫组化结果，可确定为平滑肌起源的良性播散性病变。

3.3. 治疗

由于该病较为罕见，目前尚无统一规范的治疗标准，因此该病治疗方式的选择需结合患者年龄、病变范围、生育要求及患者意愿等因素综合考虑，可分为保守治疗及手术治疗。若患者不能耐受手术或拒绝手术，可考虑保守治疗。因为考虑该病与激素关系密切，因此可以通过阻断激素达到治疗目的，但易出现停药后反弹的不良反应。高强度聚焦超声作为一种微创治疗，它可以使病变组织出现凝固性坏死，而不会对正常的组织造成损伤，但其治疗效果受肌瘤位置、血供及肿瘤数目等影响，易导致治疗不彻底。手术治疗仍是主要治疗方式，对于保守治疗无效且有生育要求的患者可行病灶清除术，术中注意尽可能切净所有病灶，术后给予 GnRH-a 治疗；若患者无生育要求，可行全子宫及双附件及盆腹腔病灶切除术。而戴[17]提出对于弥漫性子宫平滑肌瘤病，保留生育功能的单纯病灶切除手术术后复发风险高，子宫 + 双附件切除术是可以实现完全治愈的手术方式。本病例报道患者子宫、双附件、肝镰状韧带偏左侧、肝肾隐窝、盆腹腔腹膜及大网膜均出现病灶，且患者无生育要求，因此行子宫及双附件及盆腹腔肿物切除术，术后未见复发。

3.4. 预防

随着腹腔镜手术的开展，该病发生率也逐渐增高，因此可以通过以下几种方法减少其发生的概率：1) 严禁无保护性使用肌瘤粉碎器。在使用肌瘤粉碎器时，同时使用一次性收集袋，减少肌瘤与盆腹腔表面组织的接触。一次性收集袋隔绝了肌瘤与盆腹腔组织表面，能减少种植播散的可能。2) 严格筛选患者，减少肌瘤粉碎器的使用[18]。对于肌瘤较大者，建议其行开腹子宫肌瘤剔除术，告知患者腹腔镜适应症，向其交代手术方式利弊，避免盲目使用腹腔镜。若行腹腔镜手术，应代替旋切，可行将肌瘤平切的方式从阴道或腹部切口取出。美国食品与药品监督管理局于 2014 年曾发表过一项劝阻肌瘤粉碎器使用的声明，国内就肌瘤粉碎器并发症也进行过研究，因此减少肌瘤粉碎器的使用在医源性方面可能会降低该病的发生率。虽然该病为良性病变，但是不排除其有复发及恶变的可能，因此术后需要严密的随访。现今仍需明确该病的发生机制，制定相对严谨的治疗方案，以减少该病的发生以及提高患者的预后。

参考文献

- [1] 孙丙辉, 赵珊, 闫莉, 荣风年. 播散性腹膜平滑肌瘤病 1 例[J]. 山东大学学报(医学版), 2019, 57(1): 118-120.
- [2] Miyake, T., Enomoto, T., Ueda, Y., et al. (2009) A Case of Disseminated Peritoneal Leiomyomatosis Developing after Laparoscope-Assisted Myomectomy. *Gynecologic and Obstetric Investigation*, 67, 96-102. <https://doi.org/10.1159/000164949>

- [3] Ordulu, Z., Dal Cin, P., Chong, W.W., *et al.* (2010) Disseminated Peritoneal Leiomyomatosis after Laparoscopic Supracervical Hysterectomy with Characteristic Molecular Cytogenetic Findings of Uterine Leiomyoma. *Genes, Chromosomes and Cancer*, **49**, 1152-1160. <https://doi.org/10.1002/gcc.20824>
- [4] Liu, C., Chen, B., Tang, X. and Xiong, Y. (2020) Disseminated Peritoneal Leiomyomatosis after Uterine Artery Embolization, Laparoscopic Surgery, and High Intensity Focused Ultrasound for Uterine Fibroids: A Case Report. *International Journal of Hyperthermia*, **37**, 925-928. <https://doi.org/10.1080/02656736.2020.1797909>
- [5] 许阡, 柳鑫, 王金娟. 腹膜播散性平滑肌瘤病 7 例诊治分析[J]. 国际妇产科学杂志, 2022, 49(2): 228-232.
- [6] 刘达, 王晓樱, 张悦. 弥漫性子宫平滑肌瘤病的诊治进展[J]. 现代妇产科进展, 2016, 25(2): 151-153.
- [7] 缪玉娟, 李云君. 腹腔镜 Troca 孔处播散性平滑肌瘤病 1 例[J]. 世界最新医学信息文摘, 2018, 18(62): 255.
- [8] 黄帅, 王文文, 吕炳建, 石海燕. 腹腔镜下子宫平滑肌瘤切除、电动粉碎术后腹膜播散性平滑肌瘤病 1 例[J]. 临床与实验病理学杂志, 2019, 35(9): 1124-1125.
- [9] 李伟大, 赵奋华. 子宫良性平滑肌瘤肺转移 1 例[J]. 温州医科大学学报, 2019, 49(3): 226-227.
- [10] Ma, H. and Cao, J. (2015) Benign Pulmonary Metastasizing Leiomyoma of the Uterus: A Case Report. *Oncology Letters*, **9**, 1347-1350. <https://doi.org/10.3892/ol.2015.2878>
- [11] 沈明虹, 刘佳华, 孙阳. 腹膜播散性平滑肌瘤病 5 例临床分析及文献复习[J]. 山医科大学学报, 2018, 49(3): 273-276.
- [12] 邝菲, 韩海伟, 蓝岚, 等. 腹膜播散性平滑肌瘤病 CT 及 MRI 表现[J]. 中国医学影像技术, 2022, 38(3): 408-412.
- [13] 王跃, 赵雪, 刘英峰. CT 及 MRI 在盆腔内子宫外平滑肌瘤诊断中的应用价值[J]. 中国现代医生, 2022, 60(5): 122-125.
- [14] Buonomo, F., Bussolaro, S., Fiorillo, C.A., *et al.* (2021) The Management of the Cotyledonoid Leiomyoma of the Uterus: A Narrative Review of the Literature. *International Journal of Environmental Research and Public Health*, **18**, Article No. 8521. <https://doi.org/10.3390/ijerph18168521>
- [15] Barnaś, E., Książek, M., Raś, R., *et al.* Benign Metastasizing Leiomyoma: A Review of Current Literature in Respect to the Time and Type of Previous Gynecological Surgery. *PLOS ONE*, **12**, e0175875. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0175875>
- [16] 赵欣宇, 冯子懿, 李悦, 刘岩然. 腹壁及盆腔良性转移性平滑肌瘤 1 例及文献复习[J]. 中国临床研究, 2020, 33(11): 1566-1569.
- [17] 戴毓欣, 冯凤芝, 冷金花, 史宏晖, 等. 弥漫性子宫平滑肌瘤病影像学特征及临床诊治分析[J]. 中华医学杂志, 2020, 100(29): 2263-2267.
- [18] 刘福军, 凌斌. 腹腔镜子宫肌瘤手术组织粉碎的播散问题及其预防[J]. 肿瘤防治研究, 2017, 44(9): 627-630.