

# 罕见子宫畸形合并宫颈妊娠1例 并相关文献复习

郭恩慧, 焦今文, 于新平, 李园, 唐新华, 王黎明\*

青岛大学附属医院妇科, 山东 青岛

收稿日期: 2022年9月18日; 录用日期: 2022年10月8日; 发布日期: 2022年10月17日

## 摘要

目的: 探讨宫颈妊娠的病因及诊疗。方法: 回顾分析我院收治的一例双宫颈不全纵隔子宫畸形合并宫颈妊娠患者的临床资料, 对诊治过程进行报道, 并结合文献复习。结果: B超及MRI提示宫颈妊娠。入院后在双侧子宫动脉栓塞术后行超声引导下人工流产负压吸引术 + 宫腔镜下妊娠组织清除术。术后病理符合妊娠改变, 术后辅助药物治疗, 随访血清 $\beta$ -hCG降至正常, 治疗成功。结论: 宫颈妊娠临床罕见, B超及MRI可辅助诊断。子宫动脉栓塞可明显改善治疗与预后, 避免大出血切除子宫的结局。宫腔镜下妊娠组织清除术能够可视化评估宫颈妊娠植入部位, 避免盲目操作引起的大出血等并发症, 有利于更彻底地清除妊娠组织, 缩短治疗时间。

## 关键词

宫颈异位妊娠, 双宫颈不全纵隔子宫畸形, 子宫动脉栓塞术, 超声引导下人工流产负压吸引术, 宫腔镜下妊娠组织清除术

# Rare Uterine Malformation Complicated with Cervical Pregnancy: A Case Report and Review of Related Literature

Enhui Guo, Jinwen Jiao, Xinping Yu, Yuan Li, Xinhua Tang, Liming Wang\*

Department of Gynecology, Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

Received: Sep. 18<sup>th</sup>, 2022; accepted: Oct. 8<sup>th</sup>, 2022; published: Oct. 17<sup>th</sup>, 2022

## Abstract

**Objective:** To explore the etiology, diagnosis and treatment of cervical pregnancy. **Method:** Re-

\*通讯作者 Email: wlmqingyi@163.com

**文章引用:** 郭恩慧, 焦今文, 于新平, 李园, 唐新华, 王黎明. 罕见子宫畸形合并宫颈妊娠 1 例并相关文献复习[J]. 临床医学进展, 2022, 12(10): 9200-9207. DOI: 10.12677/acm.2022.12101331

retrospectively analyze the clinical data of a case of double cervical incomplete mediastinal uterine malformation combined with cervical pregnancy admitted to our hospital and review relevant literature. Results: Cervical pregnancy can be diagnosed by ultrasound and MRI. Ultrasound-guided vacuum aspiration for induced abortion and hysteroscopic removal of pregnancy tissue were performed after bilateral uterine artery embolization. The pathological diagnosis was pregnancy tissue. Adjuvant drug therapy was given after surgery, and serum  $\beta$ -hCG decreased to normal during follow-up. The treatment was successful. Conclusion: Cervical pregnancy is rare in clinic. Ultrasound and MRI can assist in diagnosis of cervical pregnancy. Uterine artery embolization can significantly improve the treatment and prognosis, and avoid the outcome of massive hemorrhage and hysterectomy. Hysteroscopic removal of pregnancy tissue can visually evaluate the implantation site of cervical pregnancy, avoid bleeding and other complications caused by blind operation, which is conducive to more thorough removal of pregnancy tissue and shorten the treatment time.

## Keywords

Cervix Ectopic Pregnancy, Double Cervical Incomplete Mediastinal Uterine Malformation, Uterine Artery Embolization, Ultrasound-Guided Vacuum Aspiration for Induced Abortion, Hysteroscopic Removal of Pregnancy Tissue

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

宫颈妊娠是一种罕见的异位妊娠，是指胚胎着床于子宫颈管内的妊娠。发生概率极低，在异位妊娠中的占比 < 1%。宫颈组织血供丰富、弹性差，如果延迟治疗或误诊，可能导致大出血，导致子宫切除甚至威胁生命安全。宫颈妊娠病因不明确，与辅助生殖技术、子宫结构异常、宫颈或子宫操作等相关[1]。本院于 2021 年 11 月 03 日发现罕见的宫颈妊娠 1 例，妊娠组织侵入肌层达浆膜层。为了保留患者生育能力，最终采用手术治疗 + 药物辅助治疗成功。现将病例资料并相关文献复习如下。

## 2. 病历摘要

患者王某，女，37 岁。因“停经 9 周 3 天，不规则阴道流血半月余”于 2021 年 11 月 03 日入院。患者平素身体健康，11 年前行剖宫产术，术后恢复可。G6P1 (剖宫产 1 次，人工流产 1 次，药物流产 3 次)。平素月经不规律，周期 30~60 天，经期 3 天，末次月经为 2021 年 08 月 29 日。患者 1 月前自测尿妊娠阳性，半月前出现间歇性阴道流血，褐色，量少于月经量，无腹痛，未见组织物排出。外院就诊，B 超示：宫内早孕，难免流产。2022 年 11 月 03 日我院就诊，妇科查体：见阴道纵隔及双宫颈，宫颈管膨大，直径约 10 cm，左侧宫颈外口轻微扩张，无活动性出血。子宫稍大，质软。双侧附件无异常。B 超：子宫大小 7.6 × 8.2 × 5.5 cm；子宫底部见 2 团内膜样回声，右侧内膜厚 1.1 cm，左侧内膜厚 1.1 cm，纵隔子宫可能(术中宫腔镜检查提示子宫纵隔存在峡部交通，为罕见的双宫颈不全纵隔子宫畸形)；子宫下段及宫颈管见不均质回声，大小 11.2 × 8.3 × 8.1 cm，前、后壁均达浆膜层，内见 6.5 × 3.8 × 2.5 cm 不规则无回声，内见胎芽样回声，长约 1.4 cm，符合 7 周 6 天，未见明显心管搏动，不均质回声边缘见环状血流信号，考虑宫颈妊娠；双附件未见明显异常，见图 1。血清  $\beta$ -hCG：44,377 mIU/ml。进一步行盆腔 MRI 检查提示：子宫体下部及宫颈部腔内团块混杂信号影，考虑异位妊娠，大范围胎盘植入，前壁为著，局

部侵及子宫壁全层，未侵及膀胱可能性大，见图2。

患者入院后完善相关辅助化验检查，肝肾功、血象等未见异常。告知患者病情及相关风险，患者强烈要求保留生育能力。综合患者病情及保留生育的意愿，排除禁忌症后，选择保留生育能力的手术治疗。2021年11月03日行甲氨蝶呤肌肉注射1次(剂量为 $50\text{ mg/m}^2$ )。2021年11月05日在局麻下行双侧子宫动脉栓塞术，术中见子宫动脉迂曲、子宫颈染色增大，见图3。采用明胶海绵进行栓塞，后造影显示栓塞适量。5小时后在全麻下行超声引导下人工流产负压吸引术+宫腔镜下妊娠组织清除术。术中放置阴道窥器暴露宫颈，见阴道纵隔，长约1 cm，见双宫颈，见图4。8号吸管负压吸引于右宫颈管内吸宫两周，吸出少量暗红色组织，于左侧宫颈管内吸见部分妊娠组织样物，见图5。在超声引导下卵圆钳夹取宫颈管内组织，仍有妊娠组织残留，血供丰富。行宫腔镜手术，见图6、图7。宫腔镜经右侧宫颈探查见：宫颈管内口处见子宫纵隔中断，长约2 cm，可探查见左侧宫颈管。继续探查见双侧宫腔子宫内膜粉红，厚。经左侧宫颈管探查见：宫颈管及子宫下段见妊娠组织样物，质韧，与周围肌层组织界限欠清，病变范围广。应用90度环状单极切除妊娠组织样物。电切结束，宫颈管及宫腔见活动性出血，双腔水囊注入生理盐水后压迫止血，经阴道外接引流袋。宫颈注射垂体后叶素配合按摩宫颈及宫底止血治疗，10分钟后出血减少。术后留置水囊压迫止血，留置阴道纱布2块。术中复查血气Hb:95 g/L,血钠110 mmol/L,立即静滴生理盐水，给予浓氯化钠及速尿治疗。术中出血约400 ml,给予输注去白红细胞2 U,术后返ICU。病情平稳后转回妇科，术后第2天血清 $\beta\text{-hCG}$ 降至6666 mIU/ml,阴道流血减少，取出纱布，拔除压迫水囊。术后给予抗生素预防感染治疗，术后恢复良好。

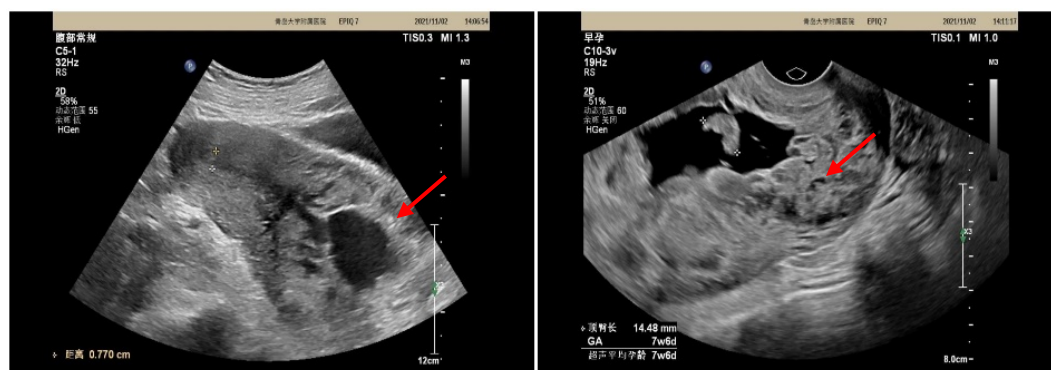


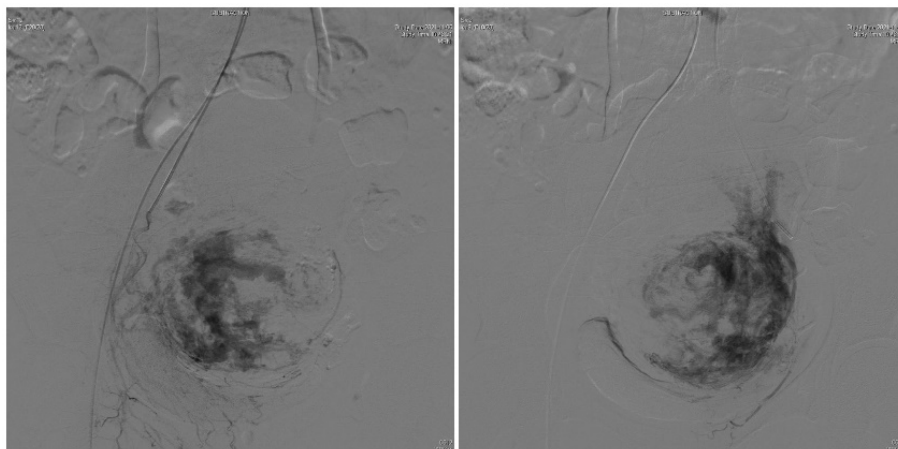
Figure 1. Ultrasound: Swollen cervix and pregnancy tissue (the red arrow refers to the lesion)

图1. B超示：膨大宫颈及妊娠组织(红色箭头所指为病灶)



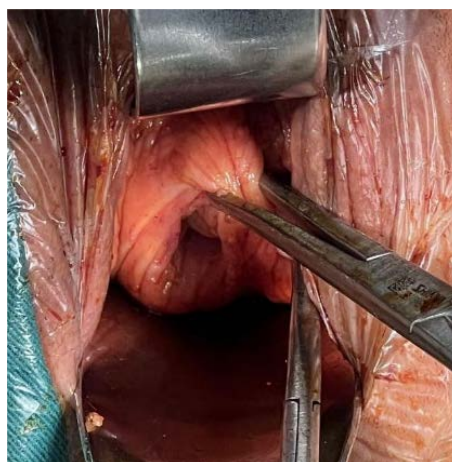
Figure 2. Pelvic MRI: A large area of pregnant tissue is implanted into the cervix, and the whole layer of uterine wall is locally invaded (the red arrow refers to the lesion)

图2. 盆腔MRI示：大范围妊娠组织植入，局部侵及子宫壁全层(红色箭头所指为病灶)



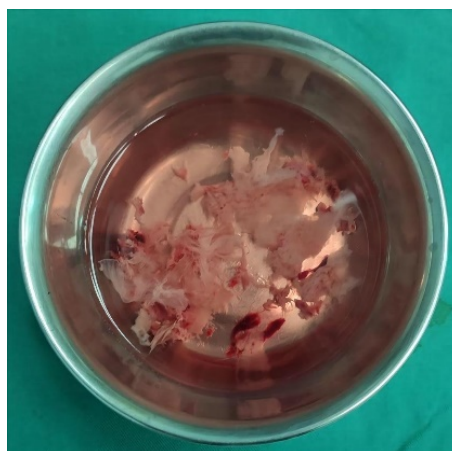
**Figure 3.** Bilateral internal iliac arteriography shows rich blood flow in cervical pregnancy tissues

**图 3.** 双侧髂内动脉造影，宫颈妊娠组织见丰富血流



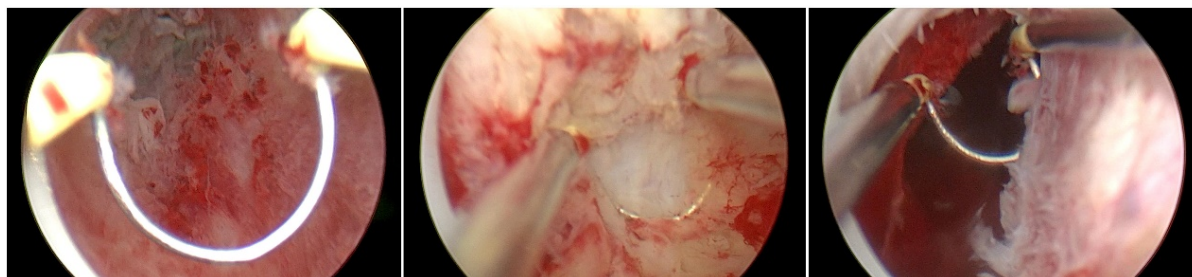
**Figure 4.** Vaginal mediastinum and double cervix

**图 4.** 阴道纵隔及双宫颈



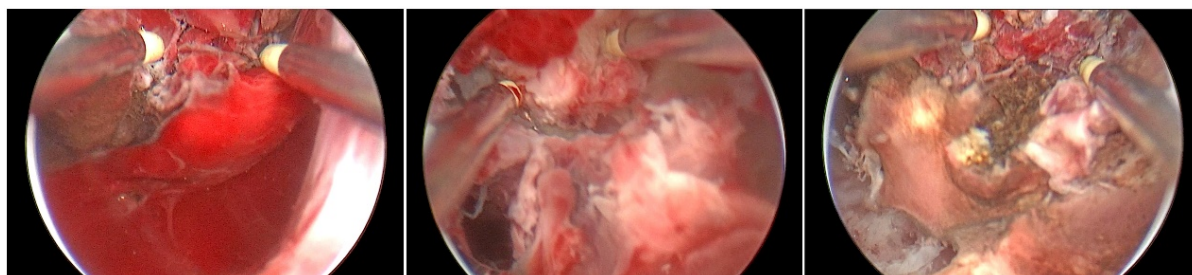
**Figure 5.** Cervical pregnancy tissue aspirated by negative pressure

**图 5.** 负压吸引出的宫颈妊娠组织



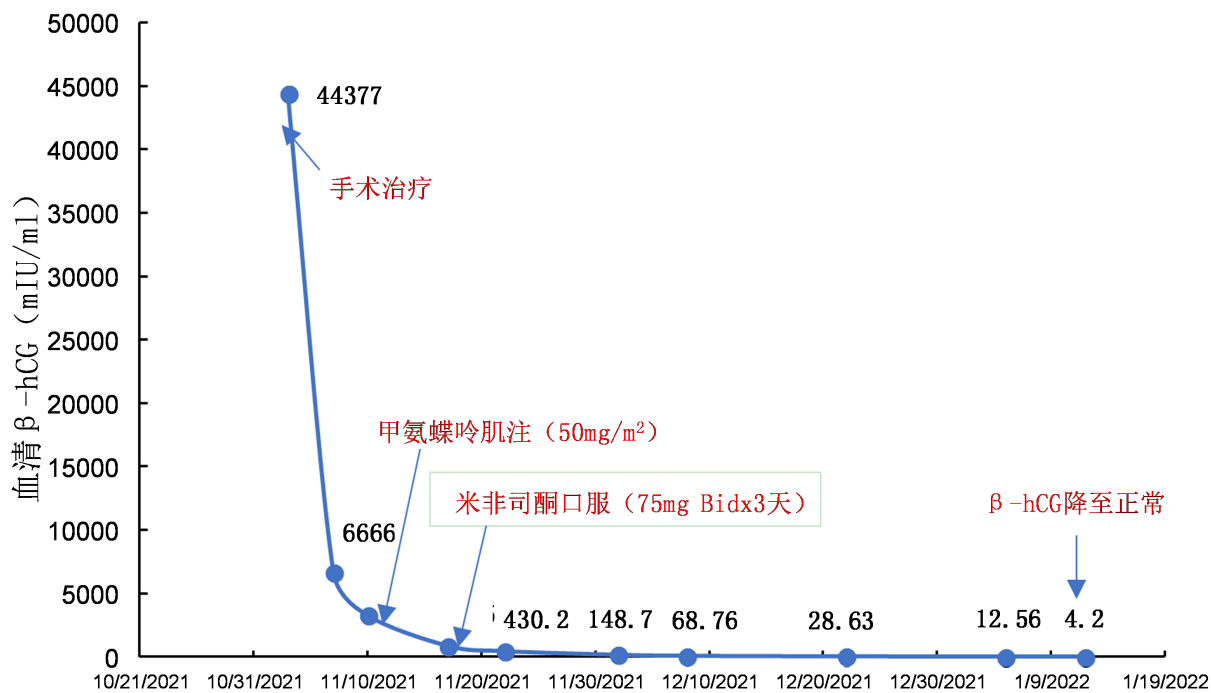
**Figure 6.** Morphology of uterus under hysteroscope (left: right uterine cavity; middle: left uterine cavity; right: mediastinal isthmus defect)

**图 6.** 宫腔镜下子宫形态(左: 右侧宫腔; 中: 左侧宫腔; 右: 纵隔峡部交通)



**Figure 7.** Hysteroscopic images of pregnancy tissues

**图 7.** 妊娠组织宫腔镜下图像



**Figure 8.** Change curve of serum  $\beta$ -hCG with time

**图 8.** 血清  $\beta$ -hCG 随时间的变化曲线

术后病理:(宫颈妊娠组织)凝血块内见绒毛及蜕膜组织,符合妊娠改变。术后 5 天复查  $\beta$ -hCG: 3268.00 mIU/ml, 再次予以肌肉注射甲氨蝶呤治疗(剂量为 50 mg/m<sup>2</sup>)。1 周后  $\beta$ -hCG 降至 858.5 mIU/ml。给予米非司酮 75 mg po Bid, 3 天一个疗程治疗, 后续  $\beta$ -hCG 下降良好, 见图 8。术后 68 天  $\beta$ -hCG 降至正常:

4.2 mIU/ml, B 超: 左侧宫颈明显增大,  $5.3 \times 4.8 \times 3.9$  cm, 内见混合回声团, 局部达浆膜层, 团块边缘见点条状血流信号。术后 70 天患者月经来潮。

### 3. 文献复习

异位妊娠是指受精卵在子宫体腔以外部位着床发育的妊娠。宫颈异位妊娠罕见, 占异位妊娠  $< 1\%$ 。如果延误治疗或漏诊, 极易引起大出血, 导致子宫切除甚至死亡。近年来, 随着辅助生殖技术的增加, 宫颈妊娠的发病率逐渐升高, 每 8600~12,400 例妊娠中就有 1 例[2]。宫颈妊娠的常见危险因素主要包括: 辅助生殖技术、盆腔炎、流产史、刮宫术史、剖宫产史、宫内节育器使用及子宫结构异常[1]。在我们的案例中, 患者主要危险因素包括流产史, 剖宫产史, 及子宫结构异常。在美国生育协会(American Fertility Society, AFS)苗勒氏管畸形分类中, 纵隔子宫包括部分性和完全性, 但均只有 1 个宫颈。完全性或不完全性纵隔子宫合并双宫颈及阴道纵隔为近年发现的极为罕见的子宫畸形, 目前尚无法准确分类, 同时也对传统的女性生殖道胚胎发育机制提出了新的挑战[3]。双宫颈不全纵隔子宫多不影响受孕, 主要影响妊娠结局[4], 患者曾因胎儿横位及纵隔阻碍行剖宫产。在本次宫颈妊娠中, 子宫结构的异常也被认为是重要的危险因素之一。

停经及阴道流血是宫颈妊娠最常见的临床症状, 通常不伴有腹痛[5]。仔细的妇科超声评估对于诊断至关重要。具有以下表现可确立诊断[6] [7]: 1) 子宫内膜蜕膜化但不存在宫内妊娠; 2) 在宫颈内口水平以下存在妊娠囊, 扩大的子宫颈等于或大于子宫体部分(沙漏形子宫); 3) 妊娠组织完全局限在宫颈管内, 并牢固地附着在宫颈管内, 没有滑动征; 4) 妊娠囊中存在胚胎结构, 周边有较丰富的高速低阻动脉血流信号; 5) 宫颈内口闭合, 宫颈外口部分开放。需要注意的是, 宫颈妊娠易被误诊为剖宫产瘢痕妊娠。不同的是, 宫颈妊娠位于宫颈内口下方, 而瘢痕妊娠常位于剖宫产切口水平上方[8]。宫颈妊娠也可能被误诊为不全流产。区分这两种情况的最好方法是通过滑动征, 当用探针对子宫颈施加轻微的压力时, 植入的宫颈妊娠囊不会滑动, 而流产的妊娠囊则会向子宫腔方向滑动[9]。当超声诊断不确定或有疑问时, 也可以使用 MRI 辅助诊断[10]。不均质出血性肿块伴有致密强化的实性成分可能是宫颈妊娠的典型磁共振表现。在 T2 加权像上呈不均匀的信号强度。在 T1 加权像上呈内部高信号强度, 边缘低信号强度, 伴致密的不规则的周边强化。强化的实性成分伴有管状信号空洞, 以及增加的宫旁血管[11]。

由于宫颈妊娠发病率低, 病例报道有限, 目前尚没有针对宫颈妊娠病例的标准治疗方案。传统的治疗方案为子宫切除术, 而目前的治疗选择主要依据患者保留生育能力的愿望、血流动力学状态、胎龄、血清  $\beta$ -hCG 水平、头臀长、有无胎心搏动以及滋养层浸润到结缔组织中的程度[12]。对于血流动力学稳定的妊娠早期患者, 首选药物治疗。最常用的药物包括甲氨蝶呤、米非司酮和米索前列醇。最有效的药物是甲氨蝶呤, 通过肌肉内单剂量或多剂量方案全身给药和/或通过羊膜腔内注射局部给药。米非司酮与甲氨蝶呤具有协同作用, 可阻止胚胎发育并加速胚胎死亡, 缩短治疗时间[13] [14]。米非司酮剂量通常为 25 至 75 mg, Bid, 口服, 3 至 5 天为一疗程[13]。当血清  $\beta$ -hCG 水平  $> 10,000$  mIU/ml、冠臀长度  $> 10$  mm 或存在胎心搏动时, 全身性应用甲氨蝶呤通常会治疗失败[10]。在这些情况下, 羊膜腔内甲氨蝶呤联合治疗可能会增加治疗的有效性。在有胎心搏动的情况下, 还建议羊膜腔内注射氯化钾以消除胚胎活性[15]。如果药物治疗失败或存在禁忌症, 可采取保留生育能力的手术治疗, 包括刮宫术、负压吸引术或宫腔镜手术切除妊娠组织。由于手术过程中极易大出血导致切除子宫的结局, 因此, 术前或术后的止血措施是必要的。术前的子宫动脉栓塞术可以限制术中及术后出血, 其他止血措施包括水囊压迫止血, 宫颈注射垂体后叶素、宫颈环扎、宫颈/子宫/髂内动脉的结扎[16]。治疗后需密切随访, 严格避孕, 每周复查血清  $\beta$ -hCG 值直至降至阴性。超声下残留滋养组织团块通常需要数周才能吸收。由于甲氨蝶呤的致畸作用, 在应用甲氨蝶呤后应至少避孕三个月。

在我们的案例中，妊娠组织浸润深度达浆膜层，血清  $\beta$ -hCG  $> 10,000$  mIU/ml，药物治疗起效慢，且不能排除保守治疗失败的可能。患者生育愿望强烈，因此采用了保留生育能力的手术治疗。在肌注一次甲氨蝶呤(剂量为  $50 \text{ mg/m}^2$ )后进行了手术治疗。妊娠组织浸润深、血供丰富，大出血导致子宫切除术风险极高，因此在术前进行了子宫动脉栓塞术，术后提示妊娠部位血供明显减少。妊娠组织较大，单凭负压吸引无法有效清除，联合宫腔镜可更加彻底地切除妊娠组织。术后见病灶活动性出血，累积出血量  $400 \text{ ml}$ 。给予宫颈注射垂体后叶素配合按摩宫颈及宫底止血治疗。术后留置水囊压迫止血，留置阴道纱布  $2$  块，止血成功。考虑到术后仍有部分妊娠组织残留，为促进  $\beta$ -hCG 尽快下降，采用肌注甲氨蝶呤及口服米非司酮协同治疗。术后  $68$  天血清  $\beta$ -hCG 降至正常，B 超提示残留妊娠组织边缘血流信号，提示妊娠组织缓慢吸收中。

#### 4. 结论

宫颈妊娠罕见，目前尚没有标准的治疗方案。目前的治疗应个体化，加强早期诊断和多学科协作。B 超及 MRI 是重要诊断工具。子宫动脉栓塞术是减少出血的关键，联合宫腔镜手术可以尽可能多地清除妊娠组织。直到今天，理想的治疗方案仍然存在争论，在我们的案例中，妊娠组织广泛侵入宫颈管壁，最终采用手术 + 药物治疗保守治疗成功。对于未来的研究，重要的是定义一个全面的宫颈妊娠管理方案，从而提高宫颈妊娠的诊疗水平，改善预后。

#### 参考文献

- [1] Vora, P.H., Jassawalla, M.J., Bhalerao, S. and Nadkarni, T. (2016) Cervical Ectopic Pregnancy: A Clinician's Dilemma. *Journal of Obstetrics and Gynaecology of India*, **66**, 617-619. <https://doi.org/10.1007/s13224-016-0875-1>
- [2] Dziejdzic, J.M. and Patel, P.V. (2019) Cervical Ectopic Pregnancy: A Rare Site of Implantation. *The Journal of Emergency Medicine*, **56**, e123-e125. <https://doi.org/10.1016/j.jemermed.2019.03.024>
- [3] 王姝, 朱兰, 郎景和. 子宫颈畸形的胚胎发育机制及临床分类新观点[J]. 中国计划生育和妇产科, 2017, 9(9): 8-11, 18.
- [4] 王颖超, 魏铭, 李静, 燕丽红. 双宫颈不全纵隔子宫畸形并足月妊娠 1 例[J]. 中国医学影像技术, 2020, 36(8): 1277.
- [5] Elmokadem, A.H., Abdel-Wahab, R.M., El-Zayadi, A.A. and Elrakhawy, M.M. (2019) Uterine Artery Embolization and Methotrexate Infusion as Sole Management for Caesarean Scar and Cervical Ectopic Pregnancies: A Single-Center Experience and Literature Review. *Canadian Association of Radiologists Journal*, **70**, 307-316. <https://doi.org/10.1016/j.carj.2018.12.002>
- [6] Yamaguchi, M., Honda, R., Erdenebaatar, C., Monsur, M., Honda, T., Sakaguchi, I., Okamura, Y., Ohba, T. and Katabuchi, H. (2017) Treatment of Cervical Pregnancy with Ultrasound-Guided Local Methotrexate Injection. *Ultrasound in Obstetrics & Gynecology: The Official Journal of the International Society of Ultrasound in Obstetrics and Gynecology*, **50**, 781-787. <https://doi.org/10.1002/uog.17384>
- [7] Bolaños-Bravo, H.H., Ricaurte-Fajardo, A., Zarama-Márquez, F., Ricaurte-Sossa, A., Fajardo-Rivera, R., Chicaiza-Maya, R. and Guerrero-Mejía, C.A. (2019) Conservative Management in a Patient with Cervical Ectopic Pregnancy in Nariño, Colombia: Case Report and Review of the Literature. *Revista Colombiana de Obstetricia y Ginecología*, **70**, 277-292. <https://doi.org/10.18597/rcog.3357>
- [8] Évora, F., Hundarova, K., Águas, F. and Carvalho, G. (2021) Cervical Ectopic Pregnancy: A Multidisciplinary Approach. *Cureus*, **13**, e19113. <https://doi.org/10.7759/cureus.19113>
- [9] Mininni, C., Garibaldi, S., Fornari, L., Domenici, L., Cattani, R. and Bottone, P. (2021) Effective Combined Treatment in Ectopic Cervical Pregnancy Preserving Fertility: A Case Report and Literature Review. *European Review for Medical and Pharmacological Sciences*, **25**, 4190-4197.
- [10] Ding, W., Zhang, X. and Qu, P. (2019) An Efficient Conservative Treatment Option for Cervical Pregnancy: Transcatheter Intra-Arterial Methotrexate Infusion Combined with Uterine Artery Embolization Followed by Curettage. *Medical Science Monitor: International Medical Journal of Experimental and Clinical Research*, **25**, 1558-1565. <https://doi.org/10.12659/MSM.913262>
- [11] Jung, S.E., Byun, J.Y., Lee, J.M., Choi, B.G. and Hahn, S.T. (2001) Characteristic MR Findings of Cervical Pregnancy.

---

*Journal of Magnetic Resonance Imaging: JMRI*, **13**, 918-922. <https://doi.org/10.1002/jmri.1131>

- [12] Ozcivit, I.B., Cepni, I., Hamzaoglu, K., Erenel, H. and Madazlı, R. (2020) Conservative Management of 11 Weeks Old Cervical Ectopic Pregnancy with Transvaginal Ultrasound-Guided Combined Methotrexate Injection: Case Report and Literature Review. *International Journal of Surgery Case Reports*, **67**, 215-218. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2020.01.020>
- [13] Hosni, M.M., Herath, R.P. and Mumtaz, R. (2014) Diagnostic and Therapeutic Dilemmas of Cervical Ectopic Pregnancy. *Obstetrical & Gynecological Survey*, **69**, 261-276. <https://doi.org/10.1097/OGX.0000000000000062>
- [14] Stabile, G., Mangino, F.P., Romano, F., Zinicola, G. and Ricci, G. (2020) Ectopic Cervical Pregnancy: Treatment Route. *Medicina (Kaunas, Lithuania)*, **56**, Article No. 293. <https://doi.org/10.3390/medicina56060293>
- [15] Júnior, J.E., Musiello, R.B., Araujo Júnior, E., Souza, E., Fava, J.L., Guerzet, E.A. and Camano, L. (2014) Conservative Management of Cervical Pregnancy with Embryonic Heart Activity by Ultrasound-Guided Local Injection: An Eight Case Series. *The Journal of Maternal-Fetal & Neonatal Medicine*, **27**, 1378-1381. <https://doi.org/10.3109/14767058.2013.856413>
- [16] Samal, S.K. and Rathod, S. (2015) Cervical Ectopic Pregnancy. *Journal of Natural Science, Biology, and Medicine*, **6**, 257-260. <https://doi.org/10.4103/0976-9668.149221>