

卵巢放线菌病 1 例

Ovarian actinomycosis: report of one case

阎辉, 杨永雁, 牛丽红, 张承敏

(北京大学肿瘤医院内蒙古医院(内蒙古医科大学附属肿瘤医院), 内蒙古 呼和浩特 010020)

YAN Hui, YANG Yong-yan, NIU Li-hong, ZHANG Cheng-min

(Peking University Cancer Hospital(Inner Mongolia Campus)/Affiliated Cancer Hospital of Inner Mongolia Medical University, Hohhot 010020, China)

[关键词] 放线菌病; 卵巢疾病; 磁共振成像

[中图分类号] R711.75; R445.2

[文献标识码] B

[文章编号] 1008-1062(2024)05-0375-03

DOI:10.12117/jccmi.2024.05.021

病例 女, 48 岁, 发现宫颈肿物 8 月余, 月经紊乱 5 月余, 伴消瘦、低热及食欲差。妇科彩超示宫颈管低回声团, 范围约 31 mm×23 mm, 边界欠清, 建议定期复查。5 月前因阴道不规则出血 10 天余, 行取环术及宫颈管诊刮, 病理结果为宫颈管黏膜组织慢性炎, 提示放线菌感染。患者于 2 月前阴道少许出血 3 天, 未在意。而后开始食欲差, 劳累后下午偶感发热, 自测体温波动于 37.3℃~38℃, 无其它明显不适。3 天前复查妇科彩超示宫颈后方异常回声, 大小约 66 mm×53 mm, 中等回声团, 与宫颈关系密切, 考虑肌瘤。前天自感发热, 全身酸痛, 无其它明显不适, 自测体温 39℃, 未用药, 昨天自然好转。入院后影像检查考虑卵巢来源的肿瘤可能大, 故在我院行全子宫+双侧附件切除术, 病理结果为放线菌感染。为防止术后病灶残留, 临床医生建议抗菌治疗, 但患者及家属拒绝进一步治疗而出院。患者术后 6 月、11 月来我院复查两次, 无任何不适, 盆腔超声检查亦未见异常病灶。

实验室检查: 白细胞升高 ($13.10 \times 10^9/L$), 中性粒细胞升高 ($10.83 \times 10^9/L$), 中性粒细胞百分比升高 (82.83%), 淋巴细胞百分比降低 (10.78%), 嗜酸性粒细胞百分比降低 (0.2%)。红细胞沉降率 (ESR) 升高: 114 mm/h。肿瘤标记物等其它实验室检查、胸部 CT、肝胆胰脾超声未见异常。

MRI 检查: 子宫体左侧类圆形肿块, 大小 46 mm×39 mm, 边界欠清。平扫 T_1WI 为等信号, T_2WI 为稍低信号, 内见小片状高信号, DWI 示病灶中央大部分呈等信号, 边缘见斑点状及短线样高信号, 与子宫分界不清(图 1)。增强扫描可见病灶在动脉期明显不均匀强化, 静脉期强化程度略减低, 但仍高于邻近子宫肌层(图 2)。宫腔内膜未见增厚, 盆腔未见肿大的淋巴结。考虑左侧卵巢性索间质肿瘤, 不排除子宫肌瘤合并变性。

超声检查: 盆腔内子宫左后方探及一中等偏低回声实性肿物, 大小约 50 mm×37 mm×45 mm, 形态尚规则, 内部回声尚均匀, 肿物周边可见部分卵巢组织声像, 内可见多个无回声区, 大者约 15 mm×10 mm, 均界清。CDFI: 在病灶中央及边缘探及比较丰富的条形、斑片状血流信号。PW 呈高阻型动脉血流频谱, RI 约 0.8(图 3)。考虑左卵巢性索间质细胞肿瘤可能性大。

术中所见: 肝膈表面、肠管表面及大网膜肉眼观未见异常。子宫前位, 正常大小, 表面光滑, 活动度尚好(台下切开子宫, 子宫内膜及宫颈管黏膜光滑, 子宫肌层均匀)。左附件实性肿物, 色白, 质硬, 与子宫左后方、盆底腹膜及左侧盆壁腹膜紧密粘连。右侧输卵管及卵巢肉眼观未见明显异常。盆腔

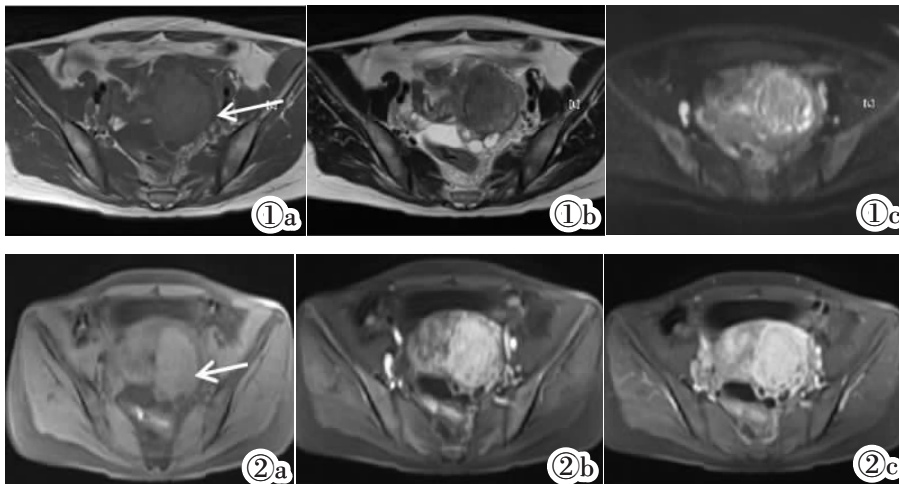


图 1 卵巢放线菌病。MRI 平扫 T_1WI 示子宫体左侧等信号肿块, 中央散发斑片状稍低信号, T_2WI 以稍低信号为主, 周边见斑片状及短条形稍高信号, 后方见数个小卵泡, 提示来源于左侧卵巢可能大, DWI 以等信号为主, 周边呈稍高信号。

图 2 卵巢放线菌病。MRI 增强动脉期示明显不均匀强化, 静脉期强化程度稍有减低, 但仍明显高于子宫壁。

[收稿日期] 2023-06-25; [修回日期] 2023-07-31

[作者简介] 阎辉(1981-), 男, 山西阳高县人, 主任医师。E-mail: yanhuitg@163.com

[通信作者] 杨永雁, 北京大学肿瘤医院内蒙古医院(内蒙古医科大学附属肿瘤医院), 010020。E-mail: yangyongyan_fc@163.com

[基金项目] 内蒙古自治区教育厅项目(2019GG039)。

少量淡黄色积液。

手术病理:(左附件肿物)送检组织标本大体呈实性肿块,最大径 70 mm,经石蜡多切面取材,病变呈弥漫性淋巴细胞、浆细胞、组织细胞及泡沫细胞浸润伴散在脓肿灶,脓肿中心可见紫红色云雾状菌落,但硫黄颗粒不明显,间质纤维组织增生、玻璃样变,病灶区失去正常结构,不能辨认卵巢及输

卵管,病灶间仅残存少许卵巢组织及输卵管组织。结合形态及免疫组化,符合非肿瘤性炎症性病变(炎性包块),倾向卵巢放线菌病。免疫组织化学:广谱 CK(-)、Sentiment(间质+)、LCA(淋巴细胞+)、CD138(浆细胞+)、CD38(浆细胞+)、inhibit(-)、SALL-4(-)、CD117(-)、β-HCG(-)、CR(-)、CD68(组织细胞+)(图 4)。

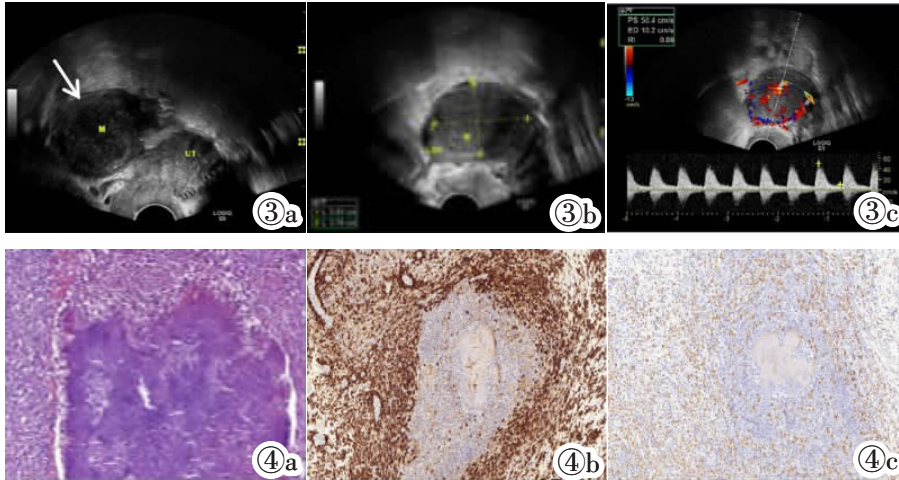


图 3 卵巢放线菌病。彩色多普勒超声示子宫左后方中等偏低回声实性肿物,与卵巢分界不清,内部回声尚均匀,CDFI 见肿物中央及边缘探及比较丰富的斑片状、短条状血流信号,PW 显示为高阻型动脉血流频谱。

图 4 卵巢放线菌病病理图像(箭),镜下(HE)可见紫红色云雾状菌落,硫黄颗粒不明显,免疫组化示 CD38 及 CD68 染色阳性。

讨论 放线菌在自然界存在较为广泛,一般情况下无致病性,是革兰染色阳性、非抗酸的不动分枝杆菌,最常见的种类是伊氏放线菌,正常情况下寄生在人体的口腔、消化道、尿道和生殖道,在机体免疫力降低或有组织创伤时,可能侵入周围的健康组织而致病,引起亚急性或慢性化脓性或肉芽肿性病变^[1]。目前发病率在城市为 5/10 万,农村为城市的 10 倍^[2]。放线菌在人体的主要致病部位是面颈部、腹盆腔脏器和胸部,面颈部病变占全部病变的 55%^[3]。腹盆腔放线菌病相对少见,其发病率大约是 1/300 000^[4]。卵巢放线菌病极为少见且病情隐匿,可能感染途径有:①上行感染,如放置宫内节育器、人工流产、长期使用阴道栓、直肠传播或口与生殖器接触等情况下,放线菌可以沿生殖道的黏膜而上行至卵巢导致感染。②可通过血行传播,也可直接通过组织、皮肤及骨骼播散^[5]。盆腔感染放线菌早期,由于患者症状不太明显往往被忽视,当就诊时其临床表现与恶性肿瘤晚期极为相似,通常表现为消瘦、纳差、发热、盆腔肿块、阴道分泌物异常等,影像学无特异性表现,与肿瘤难以鉴别,故术前诊断较困难^[6]。文献报道放线菌病的病理特征性表现为“硫磺颗粒”样^[7],见到放射状菌丝即可确诊。一旦确诊后需大剂量、长时间抗生素治疗,盆腔放线菌病的预后一般良好^[8]。

卵巢放线菌病影像表现无特异性。超声表现为实性不均质肿块,内可见低回声,边界不清楚,CDFI 显示较丰富的血流信号^[9]。CT 表现为软组织密度影,中央有稍低密度区,增强扫描病灶呈中等强化,以边缘为主^[10]。磁共振表现为 T₁WI 呈等信号,T₂WI 呈等或稍高信号,但较典型的卵巢肿瘤或感染信号略低,因其坏死少见和纤维化相对明显^[11],DWI 表现为扩散轻度受限,增强扫描呈明显不均匀强化^[12],强化程度高于子宫壁。病变广泛者可累及盆腔其它结构造成严重粘连,形成所谓的“冰冻骨盆”^[10],亦可累及腹壁、盆壁形成窦道,但其不具有特异性,也可见于其它重症感染性病变^[7]。

在影像表现上,卵巢放线菌病需要与以下几种常见的肿瘤相鉴别:①颗粒细胞瘤:最常见的卵巢性索间质肿瘤,多见

于更年期或绝经期妇女,具有内分泌功能,表现为子宫增大,内膜增厚,不规则阴道出血等。MRI 常表现为附件区的肿块,在 T₁WI 上一般表现为稍低、等信号,在 T₂WI 上为稍高信号,在 DWI 序列上因为扩散受限表现为稍高、高信号,肿块内多伴有大小不等的囊变区,增强扫描实性成分多强化较明显,时间-信号曲线类型为上升-平台型。超声图像常为实性包块,但内部回声较疏松,体积小者常被推向子宫一侧上方,彩色多普勒超声为高血流速度和低阻力表现^[13]。②子宫肌瘤:来源于阔韧带或浆膜下的肌瘤,由于位置靠近卵巢,二者往往难以区分。但肌瘤的边界一般较清楚,在 T₁WI 及 T₂WI 上信号均较低,DWI 上扩散受限不明显,增强扫描时肌瘤的强化程度多低于正常肌层,合并变性时在肿块内常见囊变区,增强扫描不均匀强化,但强化程度仍较低。彩色多普勒超声通过 CDFI 观察可发现浆膜下肌瘤与子宫间血流的密切关系。③卵泡膜纤维瘤:多见于绝经期妇女,症状不典型,部分患者有内分泌功能,故常因子宫内膜增厚伴阴道出血就诊。病灶通常以实性为主,在 T₁WI 上为稍低、等信号,在 T₂WI 序列上由于肿瘤实性部分富含纤维组织而信号较低,颇有特征性,增强扫描早期强化不明显,延迟期呈轻-中度强化,强化程度低于子宫肌层。典型的超声表现以实性为主,内部呈较均匀低回声,若含有较多纤维成分时,后方回声可出现不同程度衰减,彩色多普勒超声常可在团块内部探及点条状血流信号。

综上所述,卵巢放线菌病是一种影像学表现无特征性的、症状不典型的、发病率极低的感染性疾病,故术前诊断困难,常常被误诊为卵巢恶性肿瘤或普通脓肿。病因及致病机制提示放线菌能够沿生殖道的黏膜上行至盆腔造成感染,有阴道栓长期使用史及宫腔内放置节育器的患者其感染机会增多,尤其是有过身体其他部位的放线菌感染史,如果发现盆腔肿物可行细菌培养或穿刺细胞学检查,以提高该病的诊断准确率。回顾病史,本例患者有长期宫内节育器置入史,且曾有宫颈管黏膜组织放线菌病的病史,入院后的相关实验室检查也提示有感染性疾病存在的可能。虽然磁共振及超声表

现与卵巢性索间质肿瘤极为相似,但结合患者病史,应考虑到放线菌上行感染卵巢致病的可能性。希望通过本病例,进一步提高相关医务人员对卵巢放线菌病的认识,做到早诊断、早治疗,从而避免不必要的手术。

[参考文献]

- [1]祁晓莉,武迪,任平,等. 腹腔放线菌病临床病理观察[J]. 诊断病理学杂志,2016,23(2):127-129.
- [2]李秀丽,李祥翠,廖万清,等. 放线菌病的研究进展[J]. 中国真菌学杂志,2008,3(3):189-192.
- [3]李晨霞,张肇歆. 侵犯多脏器的盆腹腔放线菌病临床误诊分析并文献复习[J]. 临床误诊误治,2017,30(4):10-13.
- [4]贾宗洋,张培海. 盆腔放线菌病 1 例报道[J]. 现代妇产科进展,2019,28(5):399.
- [5]Chaves J, Nieto F, Gemez M, et al. Pulmonary sequestration associated with actinomycosis: a case report [J]. Antibiotics(Basel), 2020, 9(10): 687.
- [6]García-garcía A, Ramírez-lurán N, Sandoval-trujillo H, et al. Pelvic actinomycosis [J]. Canadian J Infect Dis Med Microbiol, 2017, 2017(5): 9428650.
- [7]李雷,马水清. 盆腔放线菌病[J]. 协和医学杂志,2020,11(1):68-72.
- [8]Manterola C, Grande L, Riffo-Campos A, et al. Clinical aspects of abdominal actinomycosis: a systematic review [J]. ANZ J Surg, 2020, 90(7-8): 1465-1468.
- [9]黄位耀. 盆腔放线菌病——附 5 例报告[J]. 罕见疾病杂志,2003,10(6):4-5.
- [10]王绚华. 超声辅助诊断腹部放线菌病一例报告[J]. 青海医药杂志,2018,48(9):74-76.
- [11]Hawnaur JM, Reynolds K, McGettigan C. Magnetic resonance imaging of actinomycosis presenting as pelvic malignancy [J]. Br J Radiol, 1999, 72(862): 1006-1011.
- [12]王兴,韩萍,陈燕,等. 盆腔放线菌病合并子宫肌瘤 1 例报告[J]. 中国实用妇科和产科杂志,2020,36(8):787-790.
- [13]李载红,景香香,陈银,等. 彩超联合血清 CA125、CA724 对卵巢良恶性肿瘤鉴别诊断的意义 [J]. 中国临床医学影像杂志,2016,27(6):416-418.

产前超声诊断 Holt-Oram 综合征 1 例

Prenatal ultrasound diagnosis of Holt-Oram syndrome: report of one case

刘子琴,钟 昕,胡勇军,龙湘党,游慧萍

(湖南师范大学附属第一医院(湖南省人民医院),湖南 长沙 410005)

LIU Zi-qin, ZHONG Xin, HU Yong-jun, LONG Xiang-dang, YOU Hui-ping

(The First Affiliated Hospital of Hunan Normal University(Hunan Provincial People's Hospital), Changsha 410005, China)

[关键词] 胎儿发育;先天畸形;超声检查;产前

[中图分类号] R714.53;R445.1

[文献标识码] B

[文章编号] 1008-1062(2024)05-0377-02

DOI:10.12117/jccmi.2024.05.022

病例 女,34岁,孕2产1,孕23⁺2周来本院行产前超声筛查示:胎儿双侧桡骨缺失,可见双侧尺骨,双手向桡侧偏斜、姿势固定(图1a,1b);右手拇指缺失,余4指可见,左手未见明确拇指,中指缺失,可见食指及4、5指(图2a,2b);心脏位置及房室大小、比例正常,心房正位、心室右襻,主动脉与肺动脉均起源于右室,二者根部呈平行排列,主动脉在右、肺动脉在左,肺动脉细小,主、肺动脉瓣启闭可(图3a,3b)。室间隔上部见约3mm缺损及过隔血流;余结构未见明显异常;胎儿整体发育相当于20⁺5周。超声提示:胎儿多发异常:①双侧桡骨、拇指缺失、左侧中指缺失、双手向桡侧偏斜;②右室双出口、肺动脉狭窄、室间隔缺损。以上考虑心手综合征(Holt-Oram syndrome, HOS);胎儿总发育较末次月经偏小约2周⁺。孕妇要求住院引产,分娩一死男婴;X线示双侧桡骨缺失、右手拇指缺失,左手拇指可见、中指缺如,双手偏向桡侧(图4)。

[收稿日期] 2023-06-26

[作者简介] 刘子琴(2000-),女,湖南湘潭人,在读硕士研究生。E-mail:532955484@qq.com

[通信作者] 钟昕,湖南师范大学附属第一医院(湖南省人民医院)超声科,410005。E-mail:48850038@qq.com

[基金项目] 湖南省临床医疗技术创新引导项目(2021SK50921)。

心脏解剖可见右室双出口、肺动脉狭窄、室间隔缺损。除左手手指诊断稍有偏差外,其它均与产前超声诊断相符。孕妇自述孕11周左右感染新型冠状病毒,有发热、咳嗽症状,最高体温39℃,持续2天,予以小柴胡颗粒、川贝枇杷叶泡服后约2周好转。否认家族性遗传病史、不良环境及有害物质接触史。配偶体健。6年前平产1男活婴,体健。抽羊水行胎儿染色体核型分析+染色体微缺失微重复综合征检测(CNV-seq),结果未见明确异常。孕妇拒进一步做全外显子组测序(WES)。

讨论 HOS是一种罕见的常染色体显性遗传病,由位于12号染色体长臂(12q24.1)的TBX5基因发生功能缺失突变所致,其发病率约1/10万^[1]。TBX5表达有剂量敏感性,突变形成无效等位基因而引起单倍剂量不足,产生经典HOS表现:上肢骨骼及心脏畸形和/或传导系统异常^[2]。临床上,HOS