

腹壁寄生性平滑肌瘤并发播散性腹膜平滑肌瘤病1例报告及文献复习

张金萍¹, 佟玲玲¹, 高璐¹, 程洪晶², 盛敏佳¹

1. 吉林大学中日联谊医院妇产科, 吉林 长春 130033;
2. 吉林大学中日联谊医院病理科, 吉林 长春 130033)

[摘要] **目的:** 探讨腹腔镜下子宫肌瘤核出术后出现腹壁寄生性平滑肌瘤 (PM) 并发播散性腹膜平滑肌瘤病 (DPL) 患者的诊疗经过, 以提高对该病的临床认识水平和诊疗水平。**方法:** 收集1例腹腔镜下子宫肌瘤核出术后出现腹壁PM并发DPL患者的临床资料, 分析其发病原因、临床特点、诊断、鉴别诊断和治疗经过, 并回顾相关文献。**结果:** 患者, 女性, 49岁, 因自觉腹部包块1年入院。专科查体, 脐左下侧腹壁扪及大小约为6 cm×4 cm包块, 活动性欠佳, 边界尚清, 无压痛; 脐下方右侧腹部扪及大小约为7 cm×5 cm包块, 活动性尚可, 边界清晰, 无压痛。妇科彩超, 脐孔左下方皮下可探及大小约为6.6 cm×2.7 cm的低回声。脐孔下方腹腔内可探及大小约为7.6 cm×3.3 cm的低回声。浅表局部彩超, 左下腹腹直肌内可见大小约为5.79 cm×2.55 cm×4.74 cm低回声, 边缘光滑, 较浅处距皮约1.97 cm, 较深处距皮约4.73 cm, 深方及浅方未穿破腹直肌外膜, 深方紧邻腹膜。诊断为子宫肌瘤、腹部肿物和子宫肌瘤核出术后。择期在静吸复合全麻下行开腹子宫平滑肌瘤核出术、腹壁平滑肌瘤切除术和腹膜平滑肌瘤切除术, 手术过程顺利, 患者术后恢复良好, 顺利出院。**结论:** PM和DPL无典型临床特点, 需借助影像学检查等辅助诊断, 手术探查为主要治疗手段, 多为良性, 有恶性转化可能, 患者术后需进一步随访。

[关键词] 寄生性平滑肌瘤; 播散性腹膜平滑肌瘤病; 种植; 病例报告

[中图分类号] R711.74 **[文献标志码]** B

Parasitic leiomyoma of abdominal wall complicated with disseminated peritoneal leiomyomatosis: A case report and literature review

ZHANG Jinping¹, TONG Lingling¹, GAO Lu¹, CHENG Hongjing², SHENG Minjia¹

(1. Department of Obstetrics and Gynecology, China-Japan Union Hospital, Jilin University, Changchun 130033, China; 2. Department of Pathology, China-Japan Union Hospital, Jilin University, Changchun 130033, China)

ABSTRACT Objective: To discuss the diagnosis and treatment process of the patients with parasitic leiomyoma (PM) of the abdominal wall complicated with disseminated peritoneal leiomyomatosis (DPL) after laparoscopic myomectomy, and to improve the clinical understanding and management of this

[收稿日期] 2023-09-28

[基金项目] 吴阶平医学基金会项目 (320.6750.2021-19-1)

[作者简介] 张金萍 (1997—), 女, 吉林省长春市人, 住院医师, 在读硕士研究生, 主要从事妇产科基础和临床方面的研究。

[通信作者] 盛敏佳, 教授, 主任医师, 硕士研究生导师 (E-mail: shengmj@jlu.edu.cn)

condition. **Methods:** The clinical data of one patient with PM of the abdominal wall complicated with DPL after laparoscopic myomectomy were collected. The causes, clinical features, diagnosis, differential diagnosis and treatment process were analyzed, and the relevant literatures were reviewed. **Results:** The patient, a 49-year-old woman, was admitted due to a self-discovered abdominal mass lasting for one year. The physical examination results showed a palpable mass, approximately 6 cm×4 cm, in the lower left abdominal wall with poor mobility, with clear borders, and without tenderness. Another palpable mass, approximately 7 cm×5 cm, was found in the lower right abdomen with fair mobility, with clear borders, and without tenderness. The gynecological ultrasonography results showed a hypoechoic area of approximately 6.6 cm×2.7 cm in the subcutaneous tissue below the left umbilicus and another hypoechoic area of approximately 7.6 cm×3.3 cm in the abdominal cavity below the umbilicus. The superficial ultrasonography of the local area showed a hypoechoic area of approximately 5.79 cm×2.55 cm×4.74 cm within the left lower abdominal rectus muscle, with smooth edges, located 1.97 cm from the skin at its shallowest point and 4.73 cm at its deepest point, without penetration of the rectus sheath but adjacent to the peritoneum. The patient was diagnosed as uterine leiomyoma, abdominal mass, and post-myomectomy status. The elective surgeries for uterine leiomyoma enucleation, abdominal wall leiomyoma excision, and peritoneal leiomyoma excision were performed under combined intravenous-inhalation anesthesia. The operation procedure was successful, and the patient recovered well and was discharged smoothly. **Conclusion:** PM and DPL lack typical clinical features and require imaging examinations for diagnosis. Surgical exploration is the main treatment modality, and while PM and DPL are generally benign, there is a potential for malignant transformation, and the patients need further postoperative follow-up.

KEYWORDS Parasitic leiomyoma; Disseminated peritoneal leiomyomatosis; Implantation; Case report

寄生性平滑肌瘤 (parasitic leiomyoma, PM) 是由于某些原因完全或部分脱离子宫, 依靠其他组织或器官提供血运的特殊类型肌瘤^[1], 于1909年首次提出^[2], PM病灶常见于盆腔、小肠、直肠、阴道残端和腹腔镜的Trocar口等^[3]。播散性腹膜平滑肌瘤病 (disseminated peritoneal leiomyomatosis, DPL) 的特征为腹膜内散布多个平滑肌瘤, 于1952年首次报道^[4], 于1965年命名^[5], 临床罕见, 迄今为止包括PM在内大约报道200例。现收集本院1例PM并发DPL患者的临床资料, 并进行文献复习, 结合诊疗过程探讨其发病原因、临床特点和诊断及治疗方法等, 加深临床医生对该病的认识。

1 临床资料

1.1 一般资料 患者, 女性, 49岁, 于入院前1年自行触及2个腹部包块, 位于脐下两侧, 如鸡蛋大小, 无触痛。入院前2个月开始出现月经量增多, 约为平时月经量的2倍, 经血色鲜红, 有少量凝血块, 伴轻微下腹痛。无恶心呕吐, 无腹泻和里急后重感, 无畏寒发热, 无胸闷气急。入院前13d本院妇科彩超显示: 子宫各壁可探及多个低回声, 最大的位于右侧壁近宫底, 大小约为4.1 cm×3.9 cm。脐孔左下方皮下可探及大小约6.6 cm×2.7 cm的

低回声。脐孔下方腹腔内可探及大小约为7.6 cm×3.3 cm的低回声 (图1), 遂以“子宫肌瘤、腹部肿物和子宫肌瘤核出术后”收治入院。既往手术史: 分别于13年前和5年前因“子宫肌瘤”在当地医院行腹腔镜下子宫肌瘤核出术2次, 术中均核出多个肌瘤, 且将肌瘤旋切粉碎后取出。



图1 腹壁PM并发DPL患者妇科彩超影像

Fig. 1 Gynecological ultrasound image of patient with PM of abdominal wall complicated with DPL

1.2 专科查体 患者脐左下侧腹壁可扪及大小约为6 cm×4 cm包块, 活动性欠佳, 边界尚清, 无压痛。脐下方右侧腹部扪及大小约为7 cm×5 cm

包块,活动性尚可,边界清晰,无压痛。外阴发育正常,已婚已产型,阴道通畅,黏膜伸展性良好,分泌物色白,量少,无异味。宫颈光滑,子宫前位,大小约为 $10\text{ cm}\times 8\text{ cm}\times 6\text{ cm}$,质韧,子宫右侧壁触及扪及大小约为 $4\text{ cm}\times 4\text{ cm}$ 肌瘤样结节,活动性良好,无压痛。双侧附件区未扪及明显包块。

1.3 辅助检查 妇科彩超显示:子宫各壁可探及多个低回声,最大的位于右侧壁近宫底,大小约为 $4.1\text{ cm}\times 3.9\text{ cm}$ 。脐孔左下方皮下可探及大小约为 $6.6\text{ cm}\times 2.7\text{ cm}$ 的低回声。脐孔下方腹腔内可探及大小约为 $7.6\text{ cm}\times 3.3\text{ cm}$ 的低回声。

浅表局部彩超显示:左下腹腹直肌内可见大小约为 $5.79\text{ cm}\times 2.55\text{ cm}\times 4.74\text{ cm}$ 低回声,边缘光滑,较浅处距皮约 1.97 cm ,较深处距皮约 4.73 cm ,深方及浅方未穿破腹直肌外膜,深方紧邻腹膜。见图2。

腹部计算机断层平扫:左下腹部可见3个团块状软组织密度影,较大者约为 $6\text{ cm}\times 3.3\text{ cm}\times 6.3\text{ cm}$,密度均匀。

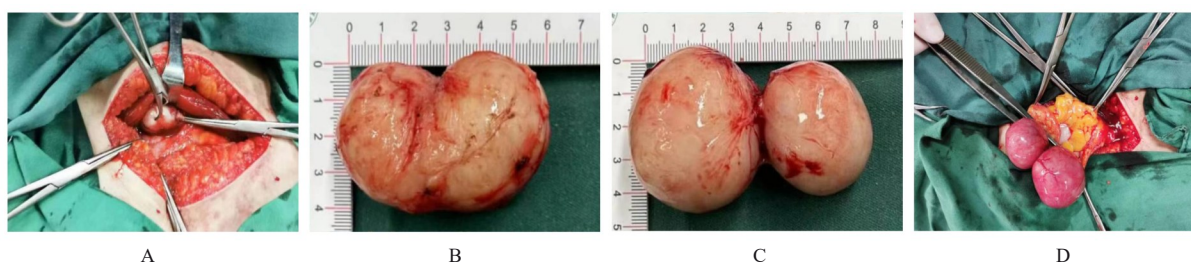
患者其余实验室相关检验结果、宫颈癌筛查、心电图和胸部计算机断层平扫等均未见明显异常。

1.4 诊疗经过 入院后结合病史、查体和相关辅助检查初步诊断为:子宫肌瘤、腹部肿物、子宫肌瘤核出术后。考虑患者可能为临床较为罕见的子宫肌瘤并发腹壁和腹膜种植病例,决定手术探查,因患者坚决要求保留子宫,遂于2023年8月14日在



图2 腹壁PM并发DPL患者浅表局部彩超影像
Fig. 2 Superficial local color Doppler image of patient with PM of abdominal wall complicated with DPL

静吸复合麻醉下行开腹子宫肌瘤核出术、腹壁肿物切除术和腹膜肿物切除术。术中腹正中左侧旁开 2 cm 纵行切口,长约 10 cm ,逐层切开腹壁各层,见切缘左侧上 $1/3$ 处腹直肌后方与腹膜之间1个大小约为 $6\text{ cm}\times 4\text{ cm}$ 肌瘤样物,钝锐性分离将肿物完整核出。打开腹膜进入腹腔,于切缘腹膜表面可见1个 $4\text{ cm}\times 4\text{ cm}$ 和1个 $3\text{ cm}\times 4\text{ cm}$ 肌瘤样物,二者紧密相连,附着处腹膜血管丰富。见图3。探查结果可见子宫各壁多个肌瘤样结节,最大者位于右侧壁近宫底,大小约为 $4\text{ cm}\times 4\text{ cm}$,其余肌瘤结节直径为 $1\sim 2\text{ cm}$ 。术中诊断:子宫平滑肌瘤、腹壁平滑肌瘤和腹膜平滑肌瘤。术中将子宫体肌瘤、腹壁肌瘤和腹膜肌瘤核出,手术顺利结束。



A: Operation cut; B, C: Excised tumor; D: Operation procedure.

图3 腹壁PM并发DPL患者术中所见

Fig. 3 Intraoperative findings of patient with PM of the abdominal wall complicated with DPL

1.5 术后病理 手术切除标本经HE染色结果显示:(子宫肌瘤核出)平滑肌瘤局部富于细胞(多枚),另见腺肌瘤;(腹壁肿物核出)平滑肌瘤局部伴变性;(腹膜肿物核出)平滑肌瘤局部伴变性。见图4。

患者于术后第7天顺利出院,嘱其术后密切随访,定期复查。

2 讨论

平滑肌瘤由平滑肌细胞和少量纤维结缔组织构

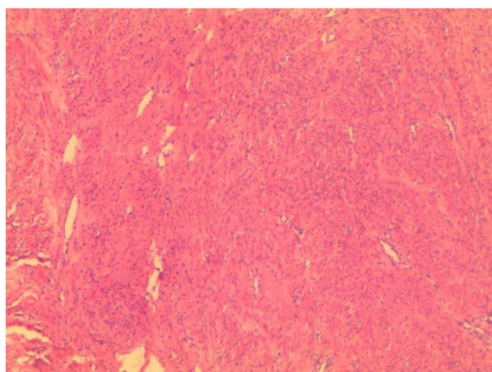


图4 腹壁PM并发DPL患者术后病理结果(HE, ×40)

Fig. 4 Postoperative pathology result of patient with PM of abdominal wall complicated with DPL(HE, ×40)

成, 子宫富含丰富的平滑肌纤维, 可发生平滑肌瘤, 而腹壁和腹膜组织中不含平滑肌组织, 由此可证实该例患者腹壁和腹膜平滑肌瘤来源于其他组织, 符合病理诊断子宫平滑肌瘤^[6], 该患者为腹壁PM并发DPL。

PM主要分为自发性和继发性, 自发性PM为带蒂的浆膜下肌瘤脱离子宫的血液供应后借助于其他器官或组织的血运生长; 继发性PM多为医源性所致, 与子宫肌瘤手术史有关^[7]。研究^[2]显示: 既往无手术史且子宫本身无肌瘤的患者也可出现PM。该患者腹壁子宫平滑肌瘤位于腹直肌后方与腹膜之间, 结合既往2次腹腔镜核肌瘤并旋切肌瘤病史, 倾向于医源性植入, 考虑其既往2次手术旋切子宫肌瘤时可能碎屑溅至腹壁 Trocar口周围或 Trocar表面, 在 Trocar进出过程中, 细小肌瘤碎屑植入于腹壁内寄生, 依靠腹直肌表面血管血液供应, 得以增殖生长。多数PM患者在其他检查或相关手术中发现, 多无明显症状, 自觉症状可表现为腹部疼痛、触及肿块、肿块压迫相关症状和腹胀等^[8]。该患者就诊时出现腹部肿块, 既往有腹腔镜子宫肌瘤切除病史, 应考虑PM, 并排除平滑肌细胞恶变可能^[3]。除外医源性PM, 其他发病原因和危险因素仍需进一步研究, 目前治疗方式以手术为主, 根据病灶大小和部位合理选择术式, 对于无症状或病灶较小且除外恶性可能的, 可选择密切随访, 若具有手术禁忌证者必要时可行内分泌治疗^[9]。

DPL作为一种罕见病, 其特征是腹膜表面存在多发良性平滑肌瘤增生, 对于平滑肌瘤的大小和数量无明确定义^[10]。妊娠、长期使用避孕药、既往子宫平滑肌瘤手术、绝经后使用激素替代治疗、

全子宫和双侧附件切除术后、雌激素相关肿瘤、卵巢过度刺激、服用他莫西芬的女性和部分男性均可能出现DPL, 多数患者存在雌激素受体和孕激素受体阳性, 但仍有少数患者雌激素受体和孕激素受体为阴性^[11-13]。该病病因不详, 可能与激素刺激、遗传、医源性和腹膜间充质细胞化生为平滑肌细胞、成纤维细胞、肌成纤维细胞及蜕膜细胞等因素有关。对于遗传易感女性, 术中分解取出子宫肌瘤或子宫时, 微小的肌瘤组织、细胞脱落于腹腔内, 在多种因素的刺激下, 通过增殖与周围组织形成新的血管, 逐渐生长, 直至发展为DPL。有研究^[4, 14-16]基于遗传理论, 对5个微卫星位点进行杂合性缺失分析结果显示: 5个微卫星位点均表现出相同的非随机X染色体失活模式, 证实DPL是由良性平滑肌组织或子宫肌瘤细胞的植入和增殖引起, 是医源性DPL, 但其遗传易感及内在因素还需进一步研究。DPL患者临床表现不一, 可无症状或继发相关并发症如腹痛等^[17], 主要通过影像学检查(超声、计算机断层扫描和核磁共振显像)确诊^[18]。

该患者49岁, 为围绝经期女性, 无口服雌激素类药物或避孕药物史, 考虑医源性DPL可能性大。与经典DPL比较, 医源性DPL有如下不同特点: ①既往有腹腔镜下核肌瘤或子宫切除病史; ②较少与妊娠、口服避孕药物或雌激素相关卵巢肿瘤病史相关; ③患者结节直径通常较大, 数量较少; ④肿瘤较少自行消退, 大部分需手术切除治疗^[19]。该患者情况与上述特点相符。DPL的主要鉴别诊断包括腹膜内平滑肌肉瘤、PM、良性转移性平滑肌瘤和静脉内平滑肌瘤病: ①腹膜内平滑肌肉瘤。腹膜内平滑肌肉瘤广泛分布于盆腔和腹腔; 肉瘤主要起源于腹膜后, 位于上腹部、肠系膜根部或腹膜后, 常伴坏死和囊性改变, 显微镜下观察, 肉瘤细胞分化差, 呈高度非典型增生^[10]; ②PM。当子宫肌瘤自发或因医源性因素与原来位置分离, 重新附着于其他位置, 即发生PM, 肿块通常表现为直径较大且数量较少^[20]; ③良性转移性平滑肌瘤。良性转移性平滑肌瘤通常为良性肌瘤向实质脏器转移, 最常出现肺转移, 也可出现在圆韧带或髂静脉附近; ④静脉内平滑肌瘤病。静脉内平滑肌瘤病是指良性平滑肌细胞侵入血管内, 进一步通过大静脉和动脉扩散, 并可在心腔内形成肿块^[5, 21]。

随着腹腔镜微创技术的不断发展, 妇科腔镜中

肌瘤医源性寄生不断出现,尚无有效方法完全避免,预防措施包括:在密闭式粉碎袋中旋切,旋切器缓慢旋切,必要时降低腹腔内CO₂气体压力^[22];扩大腹部小切口至2~3 cm将标本取出^[23];充分灌洗腹腔和Trocar口^[24];手术结束前,应先尽量排尽腹腔内气体再缓慢拔除Trocar,防止“烟囱效应”^[25]。DPL致病因素很多,还有很多相关机制需要进一步研究,虽多为良性,但仍存在恶性转化可能,曾有报道^[11]显示DPL出现平滑肌肉瘤恶性转化。

综上所述,PM和DPL的发病原因较复杂,需进一步研究,医源性因素可通过改进手术细节规避。因PM和DPL无典型临床特点,需结合既往病史及影像学检查辅助诊断。手术治疗为主要治疗方法,肿瘤虽多为良性,但仍具有恶性转化可能,患者术后需密切随访。

利益冲突声明:

所有作者声明不存在利益冲突

作者贡献声明:

张金萍参与论文的整体设计和撰写,佟玲玲参与论文的审阅和指导,高璐参与临床资料的收集和整理,程洪晶参与病理切片审阅,盛敏佳参与文章审阅和修改。

[参考文献]

- [1] SOOD A, GUPTA R G, MISHRA G V, et al. Wandering fibroid in a post menopausal woman from rural India: a case report[J]. *Cureus*, 2023, 15(7): e42734.
- [2] BARIK A, SINGH V. A curious case of parasitic fibroid in a postmenopausal woman[J]. *Cureus*, 2022, 14(5): e25048.
- [3] JEON G, PARK S Y. Parasitic leiomyoma with lymphatic dilatation in trocar port-site of abdominal wall: a case report[J]. *J Korean Soc Radiol*, 2023, 84(1): 280-285.
- [4] YE Z X, CHEN L. Leiomyomatosis peritonealis disseminata with low-grade malignant change: a case report[J]. *Medicine*, 2022, 101(36): e30528.
- [5] KIM H, CHEONG H. Leiomyomatosis peritonealis disseminata: an incidental finding at autopsy and review of literature[J]. *Am J Forensic Med Pathol*, 2023, 44(2): e10-e12.
- [6] 高志红,全丽丽,万翠英,等.腹腔镜术后穿刺孔腹膜种植子宫肌瘤1例[J]. *实用妇产科杂志*, 2014, 30(4): 302-303.
- [7] DECLAS E, LUCOT J P. Extra uterine leiomyomatosis: review of the literature [J]. *Gynecol Obstet Fertil Senol*, 2019, 47(7/8): 582-590.
- [8] TONG L X, WU L. A case of giant parasitic myoma three years after abdominal hysterectomy for fibroids[J]. *Asian J Surg*, 2022, 45(6): 1324-1325.
- [9] 尚志远,周丹,孟庆伟,等.盆腔寄生性平滑肌瘤1例并文献复习[J]. *中国现代医生*, 2023, 61(22): 137-140.
- [10] REHMAN F, TALIB S, RAZETTO A, et al. Parasitic leiomyoma as a cause for primary small bowel obstruction[J]. *Cureus*, 2022, 14(3): e23473.
- [11] ŻYŁA M M, DZIENIECKA M, KOSTRZEWA M, et al. Leiomyomatosis peritonealis disseminata of unusual course with malignant transformation: case report [J]. *Acta Obstet Gynecol Scand*, 2015, 94(2): 220-223.
- [12] YU B R, LEE S Y, CHO D H. Leiomyomatosis peritonealis disseminata with endometriosis [J]. *BMJ Case Rep*, 2021, 14(7): e240592.
- [13] GEBRESELLASSIE H W. Leiomyomatosis peritonealis disseminata in postmenopausal women: a case report with review of literature [J]. *Int Med Case Rep J*, 2016, 9: 309-312.
- [14] YURI T, KINOSHITA Y, YUKI M, et al. Leiomyomatosis peritonealis disseminata positive for progesterone receptor [J]. *Am J Case Rep*, 2015, 16: 300-304.
- [15] GERASHCHENKO A V, FILONENKO T G, GOLUBINSKAYA E P, et al. Morcellation-induced leiomyomatosis peritonealis disseminata: a rare case report [J]. *Iran J Med Sci*, 2019, 44(1): 60-64.
- [16] MIYAKE T, ENOMOTO T, UEDA Y, et al. A case of disseminated peritoneal leiomyomatosis developing after laparoscope-assisted myomectomy [J]. *Gynecol Obstet Invest*, 2009, 67(2): 96-102.
- [17] SANCHEZ DIAZ E, RENDON PEREIRA G J, PAREJA R, et al. Recurrent leiomyomatosis peritonealis disseminata [J]. *Int J Gynecol Cancer*, 2023, 33(5): 827-832.
- [18] 许阡,袁静.腹膜播散性平滑肌瘤病的诊治进展[J]. *国际妇产科学杂志*, 2023, 50(4): 361-365.
- [19] LU B J, XU J, PAN Z M. Iatrogenic parasitic leiomyoma and leiomyomatosis peritonealis disseminata following uterine morcellation [J]. *J Obstet Gynaecol Res*, 2016, 42(8): 990-999.
- [20] AL-TALIB A, TULANDI T. Pathophysiology and possible iatrogenic cause of leiomyomatosis peritonealis disseminata [J]. *Gynecol Obstet Invest*, 2010, 69(4): 239-244.

- [21] BOAVIDA FERREIRA J, CABRERA R, SANTOS F, et al. Benign metastasizing leiomyomatosis to the skin and lungs, intravenous leiomyomatosis, and leiomyomatosis peritonealis disseminata: a series of five cases[J]. *Oncologist*, 2022, 27(1): e89-e98.
- [22] TANOS V, BERRY K E, FRIST M, et al. Prevention and management of complications in laparoscopic myomectomy [J]. *Biomed Res Int*, 2018, 2018: 8250952.
- [23] 许 阡, 李 娜, 柳 鑫, 等. 腹腔镜子宫肌瘤剔除术后Trocar口部位腹壁平滑肌瘤一例[J]. *国际妇产科学杂志*, 2022, 49(5): 549-551.
- [24] LI P C, LEE M H, WEI Y C, et al. Iatrogenic parasitic myoma with two recurrence times after subsequent myomectomy: a rare and complicated case report [J]. *Gynecol Minim Invasive Ther*, 2020, 9(3): 154-158.
- [25] 戴春阳, 韩 璐. 寄生性平滑肌瘤的研究进展[J]. *国际妇产科学杂志*, 2019, 46(6): 698-701.