

【DOI】 10.3969/j.issn.1671-6450.2023.06.018

罕见病例

## 脐尿管黄色肉芽肿炎合并盆位阑尾膀胱粘连 1 例并文献复习

邱霖,袁顺辉,邱学德,韦海荣

作者单位: 650101 云南昆明,昆明医科大学第二附属医院泌尿外科

通信作者:袁顺辉,E-mail:m13099881002@163.com



【摘要】 报道 1 例脐尿管黄色肉芽肿合并盆位阑尾膀胱粘连患者的临床资料,并进行文献复习。

【关键词】 脐尿管黄色肉芽肿炎;脐尿管癌;盆位阑尾;诊断;治疗

【中图分类号】 R574.61;R657.6 【文献标识码】 B

**Urachal xanthogranulomatosis complicated with pelvic appendiceal bladder adhesion: a case report and literature review** Qiu Lin, Yuan Shunhui, Qiu Xuede, Wei Hairong. Department of Urology, the Second Affiliated Hospital of Kunming Medical University, Yunnan Province, Kunming 650101, China

Corresponding author: Yuan Shunhui, E-mail: m13099881002@163.com

【Abstract】 To report the clinical data of a case of xanthogranuloma of urachal associated with pelvic appendiceal bladder adhesion, and review the literature.

【Key words】 Xanthogranulomatosis of urachus; Urachal carcinoma; Pelvic appendix; Diagnosis; Treatment

患者,男,18岁,因“反复尿急、尿痛1年余,加重20d”,于2021年10月15日入院。近1年尿频、尿痛反复发作,偶见尿液中有絮状物,20d前症状加重,尿中絮状物增多,当地医院考虑“尿路感染”,予抗炎、抗感染等对症支持治疗后症状稍改善,CT平扫示膀胱右侧壁占位(图1)。入院查体:T 36.5℃,P 84次/min,R 14次/min,BP 124/82 mmHg。右下腹轻压痛,无反跳痛,余无特殊。实验室检查:尿红细胞 $1.4 \times 10^6/L$ 、尿白细胞 $7.1 \times 10^6/L$ 、尿细菌 $104.1 \times 10^6/L$ ;尿培养、肝肾功能、电解质、男性肿瘤标志物13项均正常。CT尿路成像:膀胱前壁及右侧壁增厚受压。MR:膀胱前壁增厚与条状软组织影相连,大小 $2.6 \text{ cm} \times 0.8 \text{ cm} \times 1.9 \text{ cm}$ ,腹股沟区多枚小淋巴结。膀胱镜检:膀胱内浑浊,顶壁可见片状灰黄色凸起,范围约 $4 \text{ cm} \times 3 \text{ cm}$ ,中间有钉状新生物(图2)。取活检提示:慢性炎性反应改变,未见恶性病变。胃肠外科会诊:无阑尾炎确切体征,建议剖腹探查。术中见黄色管状软组织与腹壁严重粘连并延伸至盆腔与膀胱顶部粘连,初步判定为病变脐尿管,粘连部下方管状样结构连接至回盲部,考虑盆位阑尾粘连(图3)。脐尿管组织术中快速冰冻:组织恶性证据不足。遂切除粘连于膀胱顶壁的囊块组织与粘连阑尾,未进一步行膀胱组织切除。术后病检结果:脐尿管黄色肉芽肿炎,未见恶性病变,CD138(+),CD38(+),CD68(+),CD163(+),VIM(+);慢性阑尾炎,黏膜下见多灶肉芽肿性炎症形成,CD68(+)。确诊为脐尿管黄色肉芽肿炎合并盆位阑尾膀胱粘连。患者术后行常规抗感染治疗,伤口恢复良好,第2天拔出尿管后自行排尿,术后第4天拔出盆腔引流管,复查血常规、血生化等未见明显异常,术后第5天顺利出院。出院后3个月门诊随访,患者已无尿频、尿痛症状,复查B型超

声无特殊。

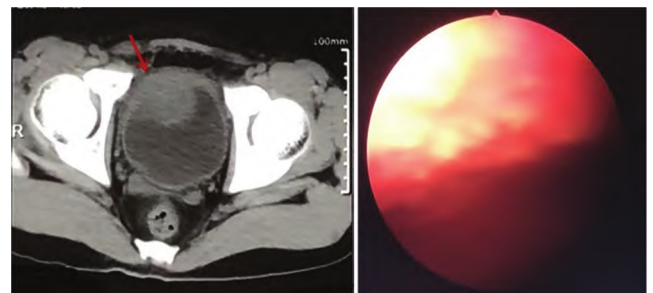
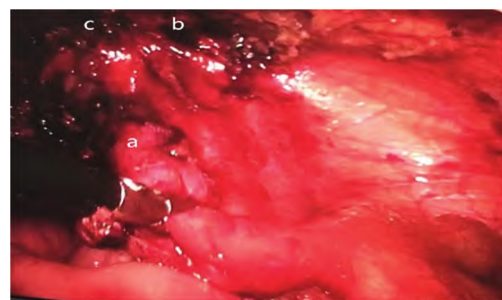


图1 CT检查示膀胱右侧壁占位 图2 膀胱镜检可见钉状新生物



注:a.阑尾;b.原脐尿管粘连位置(已切除);c.膀胱粘连位置

图3 患者手术中所见

**讨论** 脐尿管黄色肉芽肿炎(xanthogranulomatosis of urachus)是一种十分罕见的良性病变,Carrere等<sup>[1]</sup>1996年首次提出,至今国内报道类似病例多见于黄色肉芽肿性膀胱炎(xanthogranulomatous cystitis, XC),国内陈跃东等<sup>[2]</sup>报道1例脐尿管

黄色肉芽肿炎,本例合并盆腔阑尾粘连为首例报道。

输尿管一般在出生前萎缩、闭塞,又称为脐正中韧带,属腹膜外结构,位于 Retzius 间隙之间,上临腹横筋膜,下临腹膜<sup>[3]</sup>。Oberling 于 1935 年首次提出黄色肉芽肿病变,描述了一种慢性肉芽肿性炎症反应的组织学特征,该病变包含富含脂质的巨噬细胞(黄色瘤样细胞)、多核巨细胞、胆固醇结晶等。在结肠、阑尾、卵巢、子宫内膜、胆囊、胰腺、唾液腺、脑等器官中均有报道。泌尿系中最常见于肾脏,也称为黄色肉芽肿肾盂肾炎(xanthogranulomatous pyelonephritis, XGPN),该病发病机制尚不明确,可能因长期的慢性炎症反应导致局部组织破坏,脂质释放,体内巨噬细胞吞噬多余的脂质后形成黄色瘤样细胞。

输尿管黄色肉芽肿炎发病率很低,查阅国内外文献报道仅为 9 篇<sup>[1,2,4-10]</sup>,包括西班牙、中国、韩国、日本等。分析文献报道病例特征:患者男女比例无差异,年龄 18~75 岁,主要临床症状为腹痛、发热、排尿困难、尿频、尿急、尿痛等,少见有腹部肿块、肠梗阻症状,少数可无任何临床表现。所有报道中术前影像学均提及脐下至膀胱顶部间的占位,且多为实性或混合囊实性,多与膀胱顶部粘连,在膀胱镜检查中常可发现膀胱顶部点状凸起,合并钙化征象。本例患者术前 CT 可见囊管状软组织影位于膀胱顶部,与常见形态吻合,仅依靠术前影像资料极易与输尿管癌相混淆,术前诊断困难。报道中所有患者均行手术治疗,多数患者术后恢复良好,症状消失。仅有韩国学者报道 1 例 43 岁女性患者术后 9 个月复查复发,且伴有一定侵袭性<sup>[6]</sup>。西班牙学者也在报道中提及严重的黄色肉芽肿性炎症可累及大网膜、脐,甚至膀胱<sup>[1]</sup>。本例患者合并阑尾粘连,且阑尾病检报告也有类似肉芽肿病灶,且免疫组化 CD68(+),考虑存在一定侵袭性。

综上,本病是一种罕见的良性病变,少数存在一定的侵袭性。患者大多表现为腹痛、发热、排尿困难等,影像学表现极易与输尿管癌混淆,特征性影像为肿物大多存在囊管性结构,且与膀胱多为粘连或压迫关系,不影响膀胱黏膜完整性;且术前行常规抗炎、抗感染治疗后肿块可能有缩小。患者多采用手术治疗,切除范围包括输尿管以及周边粘连浸润的组织,术后恢复良好,极少患者因炎症反应较重或切除不完全,可有复发,术后定期随访是有必要的。该病例提示:术前影像学提示输尿管

癌需行手术治疗的,术中冰冻,可待冰冻结果回报再行淋巴结清扫以及必要的膀胱部分切除术,以减小手术损伤。

#### 参考文献

- [1] Carrere W, Gutierrez R, Umbert B, et al. Urachal xanthogranulomatous disease [J]. Br J Urol, 1996, 77(4): 612-613. DOI: 10. 1046/j. 1464-410x. 1996. 99632. x.
- [2] 陈跃东, 吴准, 刘菲, 等. 输尿管黄色肉芽肿 1 例[J]. 中国肿瘤临床, 2014, 41(22): 1478. DOI: 10. 3969/j. issn. 1000-8179. 20140606.
- [3] Garcia Garcia L, Ballesta B, Rodriguez Talavera J, et al. Urachal pathology: Review of cases [J]. Urol Int, 2022, 106(2): 195-198. DOI: 10. 1159/000515648.
- [4] Kasai T, Miyake N, Fukukawa T, et al. A case of urachal xanthogranuloma causing recurrent intestinal obstruction [J]. Hinyokika Kyo, 2001, 47(8): 587-590.
- [5] Yamamoto T, Mori Y, Katoh Y, et al. A case of urachal xanthogranuloma suspected to be a urachal tumor [J]. Hinyokika Kyo, 2004, 50(7): 493-495.
- [6] Kuo TL, Cheng C. Xanthogranulomatous inflammation of urachus mimicking urachal carcinoma [J]. Urology, 2009, 73(2): 443. e13-e14. DOI: 10. 1016/j. urology. 2008. 02. 045.
- [7] Tseng SF, Yang WC, Sung MT. Urachal xanthogranulomatous inflammation [J]. Urological Science, 2010, 21(4): 187-188. DOI: 10. 1016/S1879-5226(10)60042-5.
- [8] Oh JH, Chung JM, Choi S. Xanthogranulomatous inflammation of urachus [J]. The Korean Journal of Urogenital Tract Infection and Inflammation, 2013, 8(1): 55-58. DOI: 10. 14777/kjutii. 2013. 8. 1. 55.
- [9] Candamio MJD, Pombo F, Arnal F, et al. Clinical Image. Xanthogranulomatous Urachitis: CT Findings [J]. J Comput Assist Tomogr, 1998, 22(1): 93-95. DOI: 10. 1097/00004728-199801000-00018.
- [10] Takeuchi M, Matsuzaki K, Shimazu H, et al. A case of urachal xanthogranuloma containing a calculus: CT and MRI findings [J]. European Journal of Radiology Extra, 2004, 49(3): 107-109. DOI: 10. 1016/s1571-4675(03)00136-6.

(收稿日期: 2022-11-14)

作者 · 编者 · 读者

## 关于对冒用我刊名义进行非法征稿活动的郑重声明

近期发现网上有冒用我刊名义进行非法征稿活动的情况,我刊为此郑重声明如下:(1)疑难病杂志社地址设在石家庄,我社从未委托任何代理机构和个人开展组稿、征稿活动,任何打着我刊名义进行收稿活动的个人或机构均属非法。(2)根据原国家新闻出版广电总局的有关规定,一种期刊只能在其出版地设立一个编辑部,其他任何冒用本刊名义,在网上进行征稿及组稿的活动,均属非法行为。(3)作者来稿,请直接通过本刊投稿网址进行投稿,禁止发给个人,收稿后本刊将尽快给予处理,谨防上当受骗。

联系电话: 0311-85901735, 邮箱: ynbzz@163.com

投稿网址: <https://ynbz.cbpt.cnki.net>