

【DOI】 10.3969 / j.issn.1671-6450.2026.09.018

罕见病例

青少年型囊性子宫腺肌病破裂 2 例及文献复习

常证渊,任雪英,梁玲玲,栗青桃

作者单位: 046000 山西长治,长治医学院附属和济医院妇科

通信作者: 任雪英, E-mail: ren4451058@163.com



【摘要】 报道 2 例青少年型囊性子宫腺肌病破裂患者的临床资料,并进行文献回顾分析。

【关键词】 青少年型囊性子宫腺肌病;痛经;诊断;治疗

【中图分类号】 R711.74

【文献标识码】 B

Two cases of ruptured juvenile cystic adenomyoma: A report and literature review Chang Zhengyuan, Ren Xueying, Liang Lingling, Li Qingtao. Department of Gynecology, Heji Hospital Affiliated to Changzhi Medical College, Shanxi, Changzhi 046000, China

Corresponding author: Ren Xueying, E-mail: ren4451058@163.com

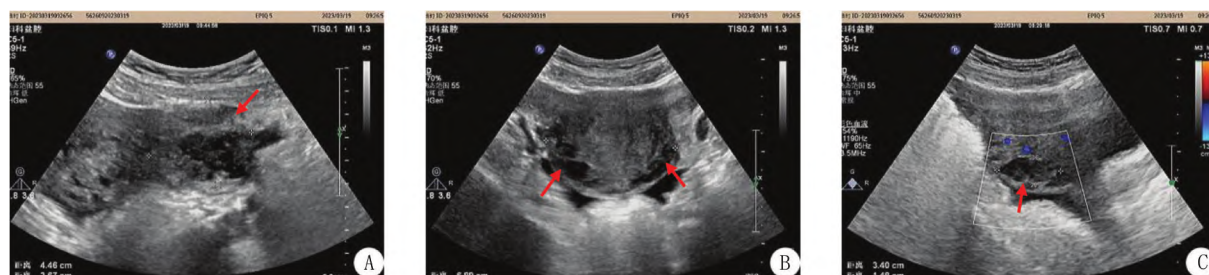
【Abstract】 This study reports the clinical data of two patients with ruptured juvenile cystic adenomyoma and conducts a literature review and analysis.

【Key words】 Juvenile cystic adenomyoma; Dysmenorrhea; Diagnosis; Treatment

病例 1.患者,25 岁,未婚未育。因“经期腹痛 2 年,下腹部疼痛伴腹胀 1 d”于 2023 年 3 月 19 日入院。既往月经规律,无原发性痛经,2 年前出现经期下腹痛,1 年前行妇科彩色超声检查示“子宫腺肌病”,口服布洛芬可缓解,1 d 前活动后突发持续性下腹痛伴腹胀,症状无缓解,遂入院。既往体健,个人史及家族史无特殊,无性生活史。查体:下腹压痛阳性,移动性浊音阳性,无反跳痛及肌紧张,未行专科检查。血常规示:Hb 82 g/L,糖类抗原 125 (CA125) 599 U/ml,妇科彩色超声检查示:子宫饱满伴肌层回声不均(6.7 cm×5.9 cm×6.8 cm),左盆腔混合性肿块(5.7 cm×5.0 cm×4.3 cm),子宫浆膜下不规则低回声区(较大者 3.3 cm×1.4 cm),盆腹腔中度积液(见图 1)。行腹腔镜探查术,术中见盆腔及道格拉斯窝(Douglas nest)积血约 1 000 ml,子宫体饱满,质软,表面多发紫蓝色窦状区域,宫底见直径约 2.0 cm、深约 1.2 cm 火山口状破裂灶,前壁近宫底处见大小约 2.0 cm 紫蓝色窦状病灶伴芽状血

管突起,存在破裂风险。双侧输卵管及卵巢未见异常(见图 2A、B)。初步诊断为青少年型囊性子宫腺肌病破裂。考虑到家属要求最大限度保留患者生育功能并尽量减少手术创伤,术中仅切除已破裂及高危破裂病灶并行缝合术,未处理其余病灶。术后病理示少许组织呈子宫腺肌病改变(见图 2C)。术后予醋酸亮丙瑞林微球治疗 3 周期,因不良反应改服地诺孕素,6 个月后因经济原因换用屈螺酮炔雌醇片(Ⅱ)。术后 4 个月复查 CA125 213.70 U/ml,术后 1 年余行妇科彩色超声检查示:右侧附件小囊肿(2.6 cm×1.1 cm)。目前患者月经规律,无明显痛经。

病例 2.患者,14 岁,未婚未育。因“月经紊乱 2 年,下腹部疼痛伴腹胀 2 d”于 2023 年 9 月 14 日入院。初潮年龄 12 岁,平素月经不规律,经量时多时少,伴重度痛经,药物治疗效果差。1 个月前行妇科彩色超声检查示“子宫腺肌病可能”,2 d 前睡眠中突发持续性下腹痛伴腹胀,遂入院。既往体健,个人史及



注: A.左盆腔混合性肿块; B.子宫饱满伴肌层回声不均; C.子宫浆膜下不规则低回声区。

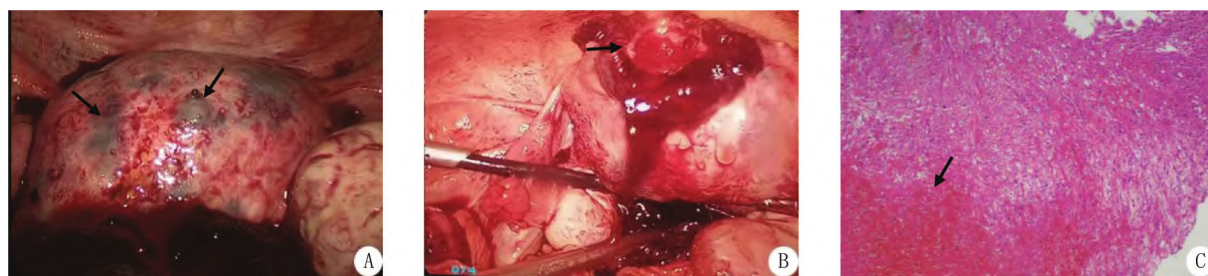
图 1 病例 1 术前超声检查结果

家族史无特殊,无性生活史。查体:体温 38℃,下腹压痛、反跳痛阳性,移动性浊音阳性,无肌紧张,未行专科检查。血常规示:WBC $27.91 \times 10^9/L$, Neu $25.08 \times 10^9/L$, Hb 91 g/L。全腹 CT 示:脾周、胸腹盆腔积液,双侧附件囊肿,不完全肠梗阻。予抗感染治疗后症状无缓解,入院第 2 日复查 Hb 降至 72 g/L;妇科彩色超声检查示:子宫纵隔,左侧子宫肌层回声不均,宫底周围异常肿块(右侧 3.0 cm×2.8 cm×1.9 cm,左侧 5.3 cm×4.1 cm×3.4 cm),腹腔积液,双侧附件囊肿(左侧 4.0 cm×3.5 cm×1.8 cm;右侧 2.1 cm×1.9 cm×1.5 cm)。急诊行腹腔镜探查术,术中见盆腔及道格拉斯窝积血约 800 ml,子宫体积大,质软,表面见 3 处火山口样破裂灶(宫底:直径约 2.5 cm、深约 1.5 cm;前壁及右后壁各直径约 1.5 cm、深约 1.5 cm),右后壁另见约 1.0 cm 紫蓝色窦状病灶伴芽状血管突起,为高危破裂病灶,双侧输卵管系膜囊肿(各约 3.0 cm×2.0 cm),双侧卵巢表面未见异常。结合病情确诊为青少年型囊性子宫腺肌病破裂。术中超声提示子宫肌层内仍存在多发囊性病灶,但子宫表面浆膜层不可见。经与家属充分沟通,术中切除表面可见的破裂及高危病灶,并行缝合术及切除双侧输卵管系膜囊肿,未处理其余病灶。术后病理:考虑子宫腺肌病,伴囊性变,炎性细胞浸润;双侧附件呈泡状(见图 3A)。术后予口服屈螺酮炔雌醇片(Ⅱ)治疗 6 个月,后续改服地诺孕素。术后 2 d CA125 1 148 U/ml,术后 1 个月行妇科彩色超声示:子宫纵隔,子宫增大伴回声不均(6.7 cm×7.2 cm×5.4 cm,提示子宫腺肌病),子宫肌层小囊(0.5 cm×0.4 cm),盆腔少量积液(见图 3B),术后 5 个月余复查 CA125 降至 13.20 U/ml;术后 2 年复查妇科彩色超声示:子宫纵隔,子宫形态饱满伴回声不均(5.6 cm×6.6 cm×4.5 cm,提示子

宫腺肌病,见图 3C)。目前患者月经规律,无明显痛经。

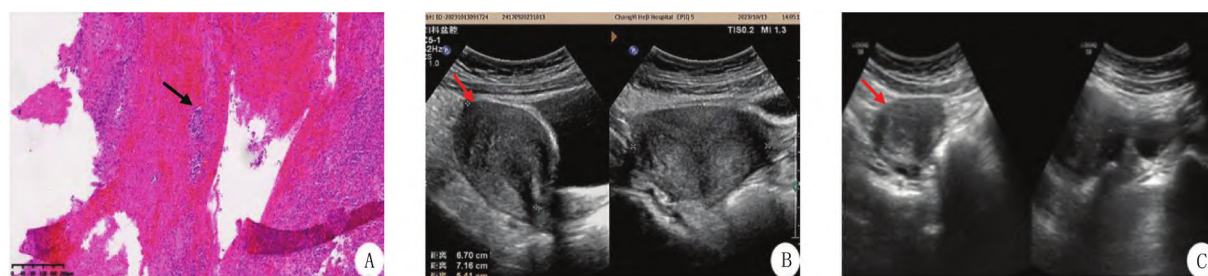
讨 论 青少年型囊性子宫腺肌病(juvenile cystic adenomyosis, JCA)为子宫腺肌病的罕见亚型,其病灶破裂病例更为罕见,外文文献仅见少数个案报道,国内已报道的 2 例均为成年型,且均行全子宫切除术^[1-4]。本组 2 例为中文文献首次报道青少年型囊性子宫腺肌病破裂病例,可为临床诊疗提供重要参考。囊性子宫腺肌病于 1990 年由 Parulekar 首次报道,2020 年《子宫腺肌病诊治中国专家共识》将其正式纳入国内诊断体系,明确定义为:局限性病灶内存在≥1 个直径≥10 mm 的囊腔,囊腔内衬子宫内膜腺体及间质,内容物为咖啡色液体,周围环绕增生肥大的平滑肌层^[5-6]。该病按年龄分为青少年型与成年型,青少年型患者年龄≤30 岁,以早期重度痛经为核心特征^[7];成年型患者年龄多>30 岁,症状与典型子宫腺肌病相似,常伴子宫手术创伤史^[8]。因目前该病术语尚未统一,本文统一采用国内病名“囊性子宫腺肌病”表述。

囊性子宫腺肌病发病机制尚未完全阐明,目前主要包括原发性与继发性两种理论。原发性病变与苗勒管发育残留相关,残留的苗勒管上皮在卵巢激素作用下周期性出血形成囊腔,早期易被误诊为梗阻性生殖道畸形^[9];继发性病变与子宫内膜-肌层结合带损伤有关,妊娠、分娩及宫腔有创操作等可促使基底层内膜侵入肌层生长,多可解释成年型病例的发病原因^[10]。此外,也有文献指出,囊性子宫腺肌病可能是子宫内膜反复损伤和修复、雌激素水平异常、免疫反应、炎性反应等因素所致,但现有研究仅限个案,确切机制待深入探究^[11]。囊性子宫腺肌病破裂的机制亦不明确,可能为激素介导的病理改变与机械性因素共同作用所致。妊娠状态下,病灶对孕酮高敏感而蜕膜



注:A.术中见子宫体饱满,质软,表面多发紫蓝色窦状区域;B.术中见宫底部直径约 2.0 cm、深约 1.2 cm 火山口状破裂灶;C.术后病理提示少许组织呈子宫腺肌病改变(HE 染色,×40)。

图 2 病例 1 术中情况及术后病理图像



注:A.术后病理考虑子宫腺肌病,伴囊性变(HE 染色,×10);B.术后 1 个月超声检查结果;C.术后 2 年超声检查结果。

图 3 病例 2 术后病理图像及超声检查

化,引发间质细胞过度转化、肌细胞萎缩坏死,破坏子宫肌层结构;非妊娠状态(如肥胖青少年)中,雌激素水平异常及子宫压力升高诱发病灶出血,导致肌纤维分离、肌层薄弱,这两种机制均通过在病灶处形成结构薄弱点,并在内外压力作用下引发破裂^[12]。

囊性子宫腺肌病临床表现无特异性,与普通子宫腺肌病相似,以渐进性痛经、异常子宫出血为常见症状,部分患者可无明显症状导致病情隐匿进展,或以病灶自发破裂所致急腹症为首表现^[13]。本组 2 例患者均以突发下腹痛就诊,符合破裂特征。该病术前鉴别困难,延误治疗可致进行性腹腔出血、失血性休克,临床需先排除异位妊娠破裂、卵巢囊肿破裂、子宫肌瘤囊性变破裂、子宫肌层红色变性、盆腔炎性疾病或输卵管卵巢脓肿破裂、梗阻性生殖道畸形及阑尾炎、肠穿孔等其他急腹症,最终结合临床症状、辅助检查、术中探查及术后病理确诊。辅助检查中,超声可提示子宫肌层内囊性肿块,囊内无回声或低回声,周围肌层轻度浸润、血流信号不明显,与宫腔界限清晰^[14]。床旁快速超声可灵敏检测囊肿破裂出血患者的腹腔积液,但存在操作经验、图像质量的局限性,且难以明确出血来源;磁共振(MR)具有特征性表现(T1 加权像高信号、T2 加权像低信号),诊断特异度达 0.96^[15];CA125 水平可正常或轻度升高,破裂后因囊内高浓度液体入血可能骤升,可作为术前辅助诊断及术后随访指标^[2,16];子宫输卵管造影(HSG)可鉴别生殖道畸形,联合静脉肾盂造影(IVP)可提高合并泌尿系畸形的诊断准确率,但不适用于无性生活史或急诊患者^[7]。术后病理为诊断金标准,可见囊内巧克力样液体及典型组织学改变。

目前囊性子宫腺肌病治疗的核心原则为彻底清除病灶,兼顾生育需求与复发预防,但需根据患者年龄、症状严重程度、病灶特点及生育愿望制定个体化方案。药物治疗方面,非甾体类抗炎药、口服避孕药及促性腺激素释放激素类似物(GnRH-a)可一定程度缓解症状,但难以根治,停药易复发^[14]。左炔诺孕酮宫内缓释系统对常规腺肌病有效,在囊性子宫腺肌病中应用有限。射频消融等微创手段因无法获取病理组织,需慎用^[17]。有研究提出,高强度聚焦超声能够靶向定位,创伤小且不良反应轻微^[18]。然而,该研究的数据仅来源于 4 个病例,缺乏大数据支持。手术为主要治疗手段,腹腔镜下病灶切除术因创伤小、恢复快、可保留生育功能而被推荐,病灶隐匿于肌层时可借助超声引导切除,黏膜下病灶可考虑宫腔镜手术,无生育需求或疑似恶变者可选择全子宫切除术^[19-20]。但腹腔镜下保留生育功能的手术对操作技术要求较高,对于多发的局灶性腺肌病病变或伴随周围弥漫性病变,需在彻底切除病灶与子宫功能保留、减少并发症之间寻求平衡^[21]。术后个体化药物辅助方案可改善手术效果并缓解术后痛经,但学术界对术后药物辅助治疗的必要性仍存分歧^[22]。本组 2 例患者术中未完全切除病灶,术后予规范药物辅助治疗,随访显示患者恢复良好,痛经症状明显缓解,残余病灶逐渐缩小至消失,疗效显著。据此笔者认为急性腹痛型囊性腺肌病患者在急诊手术后需辅以药物治疗,对于非急腹症的囊性子宫腺肌病患者,尝试药物保守治疗可能获得良好疗效。然而,药物治疗能否作为囊性子宫腺肌病的首选

治疗方式,仍需更多病例积累验证。

囊性子宫腺肌病虽为良性疾病,规范化治疗后总体预后良好,但 2014 年日本学者报道首例囊性子宫腺肌病恶变为中分化子宫内膜样腺癌的病例,提示即使恶变概率低,也需通过规范随访早期识别恶性病变^[23]。

综上,囊性子宫腺肌病破裂致腹腔内出血为罕见凶险妇科急腹症,对青少年急腹症患者鉴别诊断时需警惕囊性子宫腺肌病破裂可能。本研究为该病术后药物辅助治疗提供临床依据,也为药物治疗能否作为囊性子宫腺肌病首选治疗方案提供探讨方向。

参考文献

- [1] Keating S, Quenville NF, Korn GW, et al. Ruptured adenomyotic cyst of the uterus — A case report [J]. Archives of Gynecology, 1986, 237(3): 169-173. DOI:10.1007/BF02133861.
- [2] Hsieh P, Li Y, Chang F, et al. Ruptured cystic endometriosis within degenerated leiomyoma mimicking intra-abdominal malignancy: An unusual case report [J]. International Journal of Gynecology & Obstetrics, 2023, 161(1): 320-321. DOI:10.1002/ijgo.14553.
- [3] Zeiter M, Kao CC, Huang KG, et al. Ruptured pedunculated adenomyoma with cystic degeneration in a postmenopausal woman: A case report and literature review [J]. Gynecology and Minimally Invasive Therapy, 2025, 14(2): 178-181. DOI:10.4103/gmit.gmit_56_24.
- [4] 张天宏, 王雪, 张萍. 子宫囊性腺肌病 2 例临床分析 [J]. 现代妇产科进展, 2021, 30(9): 719-720. DOI:10.13283/j.cnki.xdfekjz.2021.09.010.
- [5] Parulekar SV. Cystic degeneration in an adenomyoma (a case report) [J]. Journal of Postgraduate Medicine, 1990, 36(1): 46-47.
- [6] 中国医师协会妇产科医师分会子宫内膜异位症专业委员会. 子宫腺肌病诊治中国专家共识 [J]. 中华妇产科杂志, 2020, 55(6): 376-383. DOI:10.3760/cma.j.cn112141-20200228-00150.
- [7] Takeuchi H, Kitade M, Kikuchi I, et al. Diagnosis, laparoscopic management, and histopathologic findings of juvenile cystic adenomyoma: A review of nine cases [J]. Fertility and Sterility, 2010, 94(3): 862-868. DOI:10.3760/cma.j.cn112141-20200228-00150.
- [8] Kriplani A, Mahey R, Agarwal N, et al. Laparoscopic management of juvenile cystic adenomyoma: Four cases [J]. Journal of Minimally Invasive Gynecology, 2011, 18(3): 343-348. DOI:10.1016/j.jmig.2011.02.001.
- [9] 王志莲, 王文静, 郝敏. 囊性子宫腺肌病的诊治新进展 [J]. 中国计划生育和妇产科, 2019, 11(4): 24-26. DOI:10.3969/j.issn.1674-4020.2019.04.08.
- [10] Farquhar C, Brosens I. Medical and surgical management of adenomyosis [J]. Best Practice & Research Clinical Obstetrics & Gynecology, 2006, 20(4): 603-616. DOI:10.1016/j.bpobgyn.2006.01.012.
- [11] 吕梦潇, 黄晓燕, 武玉蕊, 等. 子宫腺肌瘤与生育相关问题的研究进展 [J]. 实用妇产科杂志, 2021, 37(9): 664-667.
- [12] Kim NI, Lee JS, Nam JH. Uterine rupture due to adenomyosis in an adolescent: A case report and review of literature [J]. World Journal of Clinical Cases, 2023, 11(32): 7888-7894. DOI:10.12998/wjcc.v11.i32.7888.

(下转 1137 页)

- [9] 李红蓉,魏聪,贾振华,等.气络学说指导抗衰老研究[J].中国实验方剂学杂志,2022,28(1):7-15. DOI: 10.13422/j.cnki.syfjx.20220151.
- [10] 王新苗,代丹,吴浩然,等.浅谈气络学说[J].中医杂志,2019,60(14):1258-1260. DOI:10.13288/j.11-2166/r.2019.14.021.
- [11] 吴以岭,魏聪,赵珊珊.气与气络学说探讨[J].中医杂志,2017,58(21):1801-1807. DOI:10.13288/j.11-2166/r.2017.21.001.
- [12] 李震寒,陈中沛,余晓霞.糖尿病周围神经病变诊断和治疗的研究进展[J].重庆医科大学学报,2025,50(5):574-578. DOI: 10.13406/j.cnki.cyx.003772.
- [13] 吴以岭.气络-NEI 网络相关性探析[J].中医杂志,2005,46(10):723-726. DOI:10.13288/j.11-2166/r.2005.10.001.
- [14] 张栏译.益气活血通络方通过调节“气络、血络”防治糖尿病周围神经病变的机制研究[D].沈阳:辽宁中医药大学,2022.
- [15] 王智勇,李瑾.从久病入络理论探究糖尿病周围神经病变的病机和治疗[J].中国中医药现代远程教育,2025,23(19):114-117. DOI:10.3969/j.issn.1672-2779.2025.19.033.
- [16] 岳圆圆,石岩硕,岳月红,等.系统评价及序贯分析丹参多酚酸盐对糖尿病及慢性微血管并发症患者临床指标的影响[J].世界科学技术-中医药现代化,2025,27(5):1297-1311. DOI: 10.11842/wst.2024.0312006.
- [17] 马仙康.基于内质网应激研究当归多糖对糖尿病 KK-Ay 小鼠肝脏 GRP78、p-PERK、p-Eif2 α 表达的影响[D].兰州:甘肃中医药大学,2023.
- [18] 徐晓薇.活血通络方穴位贴敷和隔姜灸治疗糖尿病周围神经病变瘀血阻络证的效果分析[J].中国医药指南,2025,23(18):156-158. DOI:10.15912/j.issn.1671-8194.2025.18.046.
- [19] 高会彦,侯全云.当归四逆汤联合针刺治疗糖尿病周围神经病变临床观察[J].河南中医,2025,45(11):1654-1659. DOI: 10.16367/j.issn.1003-5028.2025.11.0268.
- [20] 曹绍兰,杨先飞.基于“虚、痰、瘀”辨治糖尿病周围神经病变[J].内蒙古中医药,2024,43(3):137-140. DOI:10.16040/j.cnki.cn15-1101.2024.03.072.
- [21] 张明发,沈雅琴.半夏及其炮制品对神经和循环系统的药理作用研究进展[J].抗感染药学,2017,14(9):1643-1648. DOI: 10.13493/j.issn.1672-7878.2017.09-001.
- [22] 李静,金伦喆,金洪光.白术提取物苍术酮对脂多糖诱导的 BV2 细胞神经炎症影响及相关机制研究[J].天然产物研究与开发,2020,32(5):826-830,758. DOI: 10.16333/j.1001-6880.2020.5.015.
- [23] 赵思思,张春玲,陈露,等.玄府理论指导下的针罐结合治疗气虚血瘀型糖尿病周围神经病变[J].贵州中医药大学学报,2025,47(2):6-11. DOI:10.16588/j.cnki.issn2096-8426.2025.02.002.
- [24] 周方圆,杨宇峰,石岩.基于“因虚致瘀”理论探讨糖尿病周围神经病变病机[J].辽宁中医药大学学报,2024,26(8):43-46. DOI: 10.13194/j.issn.1673-842x.2024.08.009.
- [25] 翟丽萍,陆骏,王旭.基于“瘀热致消”理论探讨清化瘀热方治疗早期糖尿病视网膜病变的临床疗效的研究[J].内蒙古中医药,2024,43(1):20-21. DOI:10.16040/j.cnki.cn15-1101.2024.01.005.
- [26] 唐茹梦,王思成,温雅璐,等.基于“毒损络脉”探析糖尿病周围神经病变的病机及治疗[J].北京中医药,2022,41(7):762-765. DOI:10.16025/j.1674-1307.2022.07.014.
- [27] 朴春丽,罗金丽,刘文科.态靶辨证在气虚络瘀型糖尿病周围神经病变中的运用——黄芪桂枝五物汤加川乌、鸡血藤、桑枝[J].辽宁中医杂志,2020,47(2):4-6. DOI: 10.13192/j.issn.1000-1719.2020.02.002.
- [28] 周剑宇.中药赤芍、白芍对神经病理性疼痛模型大鼠的作用及机制研究[D].北京:北京中医药大学,2016.

(收稿日期:2026-04-07)

(上接 1133 页)

- [13] Hashizume K, Toyoshima M, Shiraishi T, et al. Carcinosarcoma of the uterus, derived from subserous cystic adenomyosis, presenting as an acute abdomen: A case report and review of the literature[J]. Gynecologic Oncology Reports, 2023, 45: 101139. DOI:10.1016/j.gore.2023.101139.
- [14] Arya S, Burks HR. Juvenile cystic adenomyoma, a rare diagnostic challenge: Case reports and literature review[J]. F&S Reports, 2021, 2(2): 166-171. DOI:10.1016/j.xfre.2021.02.002.
- [15] 冉渝,牟灿,李庆妹,等.浆膜下子宫囊性腺肌瘤 1 例及文献回顾分析[J].生殖医学杂志,2025,34(1):103-107. DOI:10.3969/j.issn.1004-3845.2025.01.017.
- [16] Xu T, Li Y, Jiang L, et al. Subserous cystic adenomyosis: A case report and review of the literature[J]. Frontiers in Surgery, 2022, 9: 807676. DOI:10.3389/fsurg.2022.807676.
- [17] Cucinella G, Billone V, Pitruzzella I, et al. Adenomyotic cyst in a 25-year-old woman: Case report[J]. Journal of Minimally Invasive Gynecology, 2013, 20(6): 894-898. DOI:10.1016/j.jmig.2013.04.022.
- [18] Zhou XJ, Zhao ZM, Liu P, et al. Efficacy of high intensity focused ultrasound treatment for cystic adenomyosis: A report of four cases[J]. Annals of Palliative Medicine, 2020, 9(6): 3742-3749. DOI: 10.21037/apm-20-1599.
- [19] Said MR, Afaneh H, Zaghmout O, et al. Minimally invasive management of juvenile cystic adenomyoma: Report of three cases[J]. Facts, Views and Vision in ObGyn, 2021, 13(3): 267-272. DOI: 10.52054/FVVO.13.3.033.
- [20] Pontrelli G, Bounous VE, Scarperi S, et al. Rare case of giant cystic adenomyoma mimicking a uterine malformation, diagnosed and treated by hysteroscopy[J]. Journal of Obstetrics and Gynaecology Research, 2015, 41(8): 1300-1304. DOI:10.1111/jog.12698.
- [21] Protopapas A, Kypriotis K, Chatzipapas I, et al. Juvenile cystic adenomyoma vs blind uterine horn: Challenges in the diagnosis and surgical management[J]. Journal of Pediatric and Adolescent Gynecology, 2020, 33(6): 735-738. DOI:10.1016/j.jpjag.2020.08.010.
- [22] 魏蔚霞,胡启彩,曾荔苹,等.囊性子官腺肌瘤的临床特点分析[J].现代妇产科进展,2019,28(7):534-536. DOI:10.13283/j.cnki.xdfckjz.2019.07.014.
- [23] Mori M, Furusawa A, Kino N, et al. Rare case of endometrioid adenocarcinoma arising from cystic adenomyosis[J]. Journal of Obstetrics and Gynaecology Research, 2015, 41(2): 324-328. DOI: 10.1111/jog.12513.

(收稿日期:2025-11-24)