

会阴血管畸形及阴道卵黄囊瘤致幼女阴道出血 2 例

马巧玉

作者单位:250000 山东 济南,山东第一医科大学附属济南妇幼保健院妇科

作者简介:马巧玉,毕业于大连医科大学,硕士研究生,主治医师,主要研究方向为妇科肿瘤及盆底疾病的治疗

【关键词】 阴道流血;幼女;诊断

【中图分类号】R 737.3 【文献标志码】B

【文章编号】1674-4020(2025)03-110-03

doi:10.3969/j.issn.1674-4020.2025.03.24

幼女阴道出血可由多种原因导致,如外伤、异物、感染、性早熟、肿瘤、临近器官出血混淆、其他等,临床上诊治难度较大,及时找准病因、对症处理至关重要。本文报道 2 例少见病因导致幼儿阴道出血病例,现报告如下。

1 病例资料

病例 1:患儿女,3 岁,因“阴道流血 3 次”于 2022 年 8 月 22 日就诊于济南市妇幼保健院,家长主诉患儿半月前无明显诱因出现阴道流血 1 次,量少,色鲜红,与排尿排便无关,随即停止,大小便及饮食睡眠正常,未就诊。近 2 日再次出现阴道流血,片刻自止,仍无大小便及其他改变,来诊。查体:外阴幼女型,见血迹,阴道口未见异物,未见裂伤。入院后完善超声检查提示:阴道积液,子宫不大,卵巢内见最大卵泡约 7 mm × 9 mm。促卵泡生成素:1.92 mIU/mL;促黄体生成素:0.1 mIU/mL;雌二醇:6.15 pg/mL;孕酮:0.08 ng/mL。尿常规:红细胞阴性;白细胞弱阳性。凝血功能及血细胞分析、肝肾功等均正常。入院诊断:阴道流血原因待查,静脉麻醉下行阴道内镜检查术,术中未见阴道异物,阴道前壁及后壁散在炎性出血点,宫颈光滑,表面无出血。考虑患儿炎症相关可能,予以出院后坐浴治疗。患儿于 2022 年 8 月 23 日出院后仍间断出现阴道流血,且频次增加,期间就诊于多家医院,行宫腔镜、血细胞分析、凝血功能、性激素检查等检查,均未明确原因。2023 年 7 月 10 日患儿再次因流血就诊于外院,行盆腔核磁检查发现:会阴部局部皮下脂肪层内水肿信号,考虑会阴部血管畸形,遂住院行盆腔血管造影,术中先行选择性双侧髂内动脉造影未见明显血管畸形及回流静脉早显。对照核磁共振后行经皮会阴病灶穿刺,见暗褐色静脉血缓慢流出,考虑 2 型静脉畸形,遂行静脉栓塞(无水酒精 0.5 mL 联合 0.3% 聚多卡醇泡沫)(见图 1)。术后至今患儿未再

出现流血症状。

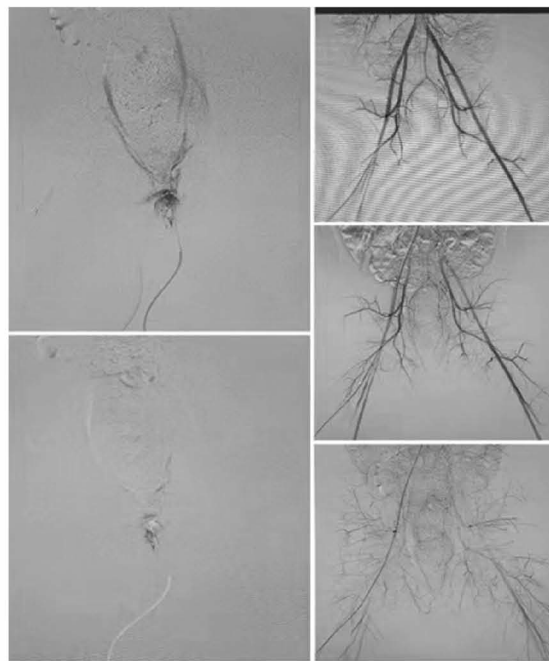
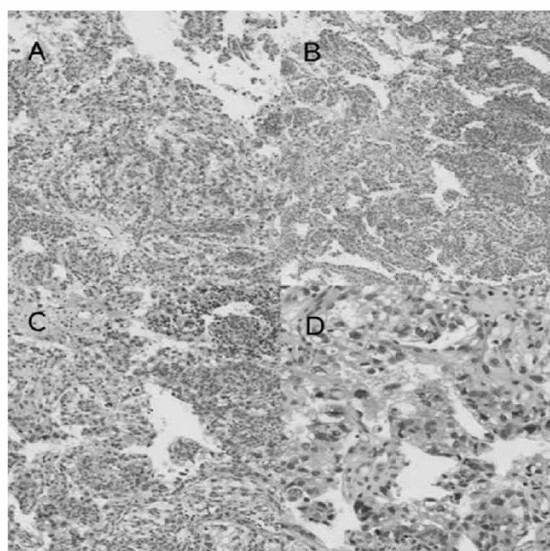


图 1 盆腔血管造影图

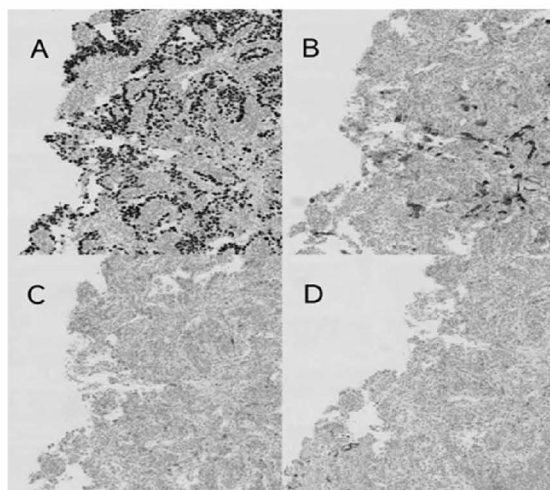
病例 2:患儿女,4 岁,2023 年 7 月 1 日无明显诱因出现阴道流血,色鲜红,量少,无大小便改变,就诊于外院查血细胞分析、尿常规、甲状腺功能、肝肾功、大便常规等均正常,促卵泡生成素 1.48 mIU/mL,促黄体生成素 <0.1 mIU/mL,生长激素 0.34 ng/mL,乳腺及盆腔超声提示双乳腺腺体显示,幼稚子宫。考虑“阴道炎”予以“高锰酸钾坐浴、甲硝唑溶液冲洗”治疗,效果欠佳,患儿仍有阴道流血。于 2023 年 7 月 28 日就诊于我院。查体:外阴阴染,阴道口见血迹,未见裂伤。超声检查:幼稚子宫,盆腔少量积液。入院后在静脉麻醉下行阴道内镜检查:宫颈幼稚型,表面未见异常;阴道内未见异物,阴道左后壁近处女膜缘见 1.5 cm × 1.0 cm × 1.0 cm 瘤

样突起,表面不规则,可见增生血管,余阴道壁光滑,未见异常。行阴道壁肿物活检,活检后肛诊:肠管前方距肛门约 1 cm 处可及该肿物,质硬,形态不整。术后病理回报:卵黄囊瘤,SALL4(+)、AFP(部分+)、EMA(-)、CK7(-)(见图 2、图 3)。患儿转诊至北京某医院,经病理会诊,诊断卵黄囊瘤,行阴道壁肿物切除,术后予以 BEP(博来霉素+依托泊苷+顺铂)化疗 6 程,患儿目前随访中,健在。



注:A:×20;B:×40;C:×60;D:×80

图 2 阴道卵黄囊瘤(HE 染色)



注:A:SALL4;B:AFP;C:EMA;D:CK7

图 3 免疫组化图(×20)

2 讨论

幼女因阴道流血就诊并不少见,最常见的原因分别为炎症、异物及性早熟等,但其他病因仍需考虑。本文 2 例幼女主诉均为阴道流血,但并不是常见原因。Söderström HF 在探究 0~9 岁幼女阴道出血的病因时发现:阴道流血最常见的原因因为局部病变(54.7%),其次依次为激素相关、不明原因。而创伤是局部病变最常见的原因,新生儿激素戒断是最常见的激素病因,少见病

因为妇科肿瘤^[1]。故对于因阴道流血,特别是鲜血就诊的患儿,不应仅考虑幼女阴道炎,如果按照炎症治疗效果不佳,应及时更改诊疗方向。

病例 1 最终诊断为先天性盆腔血管畸形(2 型静脉畸形),盆腔血管畸形(pelvic arteriovenous malformations, AVMs)是指盆腔的血管之间通过瘘直接相通,形成畸形血管团,临床罕见,通常认为是良性病变。根据累及器官不同,可表现为疼痛、血尿、阴道出血、直肠出血、肾积水、血精、阳痿等^[2-3]。而导致出血的主要原因是黏膜或皮肤表面受累^[4]。

静脉畸形(venous malformation, VM),属于血管畸形的一个亚型,通常以单一静脉结构存在,也可与其他血管结构混合形成毛细血管静脉畸形或淋巴静脉畸形等混合畸形。为先天发生,最常见于头、颈、颌面部,四肢、躯干次之,其他位置少见。往往随人体的生长发育而相应增大,不会自然消退^[5]。目前静脉畸形广泛应用的分类方法是由 Puig 等^[6]于 2003 年提出,将 VM 分为 4 种类型:I 型:几乎孤立,无明显引流的 VM;II 型:引流至正常静脉的 VM;III 型:VM 引流至发育不良静脉;IV 型:静脉扩张。2024 年,Bernhard 等^[7]建议通过对引流静脉是否存在腔隙进行评估,分为:非腔隙型“a”和腔隙型“b”。理由是在栓塞治疗过程中非腔隙 a 型可能对内皮细胞产生更大的毒性作用,更容易被硬化治疗完全闭塞,而腔隙 b 型则需要更多的栓塞剂。

VM 的主要治疗方法是血管内硬化,通过硬化剂破坏血管内皮细胞,造成病灶血管的纤维化闭塞和体积萎缩,实现外观和功能的康复,复发概率较小^[5]。但对于广泛而弥散的病灶,则需多次治疗。目前常用硬化剂包括:无水乙醇、泡沫硬化剂(聚多卡醇、聚桂醇、十四烷基硫酸钠)、博来霉素、鱼肝油酸钠等^[8-12]。除血管硬化治疗外,还有手术切除(单纯手术切除、硬化术后手术切除)、激光治疗、铜针留置术、电化学及患肢压迫治疗等^[13-17]。但主流的治疗方法仍为血管内硬化治疗。

病例 2 最终诊断为阴道恶性生殖细胞瘤(卵黄囊瘤)。恶性生殖细胞肿瘤是较少见的小儿肿瘤,占有小儿恶性肿瘤的 3%^[18]。阴道卵黄囊瘤约占生殖细胞肿瘤的 3%~8%^[19]。好发于 3 岁以下的婴幼儿,恶性程度高^[20-21]。

临床表现为阴道流血及阴道黄色分泌物,部分患者可表现为肿瘤脱落、发热、尿潴留,均伴有 AFP 升高^[22-25]。阴道内镜下见肿瘤呈灰白、灰黄色结节状,部分呈鱼肉状,质软,伴出血、坏死。

因阴道卵黄囊瘤少见,目前尚无诊疗规范,既往多采用根治性手术切除(包括子宫切除术、阴道切除术及淋巴结切除术),严重影响患者生活质量。随着手术技术的提高及新化疗方案的应用,保守性手术联合术后化疗亦能够取得满意的临床效果^[26-27]。预后与肿瘤是否完整切除有关。故仍需随访以明确是否存在肿瘤残留(AFP 仍偏高或影像学提示肿物残留)^[22]。

此 2 例给予我们的提示:1. 幼女阴道出血的原因繁多,病史采集困难,常引起患儿及家长的心理恐慌,又因

处女膜阻挡、患儿不合作等,临床诊治难度较大,因具体流血原因不一,临床处理差异大。快速准确的诊断至关重要,临床检查和超声检查起重要作用,但阴道内病变和血管性病变临床指导意义有限。对于反复检查仍不能明确异常流血原因者,需要警惕临近系统疾病或血管性出血^[28],尤其是流血模式呈现出突发突止,类似“开关”模式的流血患者,盆腔核磁可作为一种无创检查方案,建议尽早完善,了解盆腔内血管及临近器官情况。

2. 阴道内镜在青春期前儿童主要适用于多种妇科疾病的诊治:① 阴道异物;② 下生殖道的感染;③ 生殖道肿瘤及良性的阴道及宫颈赘生物;④ 下生殖道损伤等,都具有较高的成功率,尤其在阴道异物以及下生殖道赘生物等疾病中,是首选方法^[29]。幼女因其处女膜组织比较脆弱,加上膜口的大小不同,在内镜检查过程中很容易发生撕裂^[30]。麻醉不仅可以保护处女膜的完整性,减少对阴道的损伤,还能达到更满意的检查治疗效果^[29,31-33]。尤其对于临床表现为阴性但仍高度怀疑异物的病例,建议麻醉下行诊断性阴道内镜检查。

利益冲突 作者声明无利益冲突。

【参考文献】

- [1] Söderström HF, Carlsson A, Börjesson A, et al. Vaginal bleeding in prepubertal girls: etiology and clinical management [J]. J Pediatr Adolesc Gynecol, 2016, 29(3):280-285.
- [2] Aymard A, Bisdorf A, Saint-Maurice JP, et al. Malformations arterio-veineuses de l'abdomen et du pelvis: diagnostic et indications thérapeutiques [J]. La Presse Médicale, 2019, 48(4):411-418.
- [3] Game X, Berlizot P, Hassan T, et al. Congenital pelvic arteriovenous malformation in male patients: a rare cause of urological symptoms and role of embolization [J]. European Urology, 2002, 42(4):407-412.
- [4] Greene AK, Orbach DB. Management of arteriovenous malformations [J]. Clin Plast Surg, 2011, 38(1):95-106.
- [5] 中华医学会整形外科学分会血管瘤脉管畸形学组. 血管瘤与脉管畸形诊疗指南(2024版) [J]. 组织工程与重建外科, 2024, 20(1):1-50.
- [6] Puig S, Aref H, Chigot V, et al. Classification of venous malformations in children and implications for sclerotherapy [J]. Pediatr Radiol, 2003, 33(2):99-103.
- [7] Bernhard SM, Kammer FR, Roumet MC, et al. A proposal for a revision of the phlebographic classification of congenital venous malformations [J]. Cardiovasc Diagn Ther, 2024, 14(2):283-293.
- [8] Song D, Guo L, Sheng H, et al. DSA-guided percutaneous sclerotherapy for children with oropharyngeal low-flow venous malformation [J]. Exp Ther Med, 2020, 19(5):3405-3410.
- [9] 刘自芳, 杨青, 王春芳, 等. 聚桂醇注射治疗静脉畸形及其美学效果评价 [J]. 中国美容整形外科杂志, 2021, 32(6):365-368.
- [10] Gao Z, Zhang Y, Li W, et al. Effectiveness and safety of polidocanol for the treatment of hemangiomas and vascular malformations: a meta-analysis [J]. Dermatol Ther, 2018, 31(1). doi: 10.1111/dth.12568.
- [11] James CA, Braswell LE, Wright LB, et al. Preoperative sclerotherapy of facial venous malformations: impact on surgical parameters and long-term follow-up [J]. J Vasc Interv Radiol, 2011, 22(7):953-960.
- [12] 王德明, 苏立新, 范新东. 静脉畸形中国专家共识 [J]. 介入放射学杂志, 2019, 28(4):307-311.
- [13] 肖晓笛, 张龙, 夏有辰, 等. 术前栓塞结合手术切除瘤巢治疗体表动静脉畸形的疗效观察 [J]. 中国美容整形外科杂志, 2023, 34(12):748-751, 770.
- [14] 景生华, 李益坤, 李静, 等. 射频刀治疗脑动静脉畸形的剂量学分析 [J]. 医疗卫生装备, 2023, 44(11):56-60.
- [15] Colletti G, Ierardi AM. Understanding venous malformations of the head and neck: a comprehensive insight [J]. Med Oncol, 2017, 34(3):42.
- [16] Johnson AB, Richter CT. Surgical considerations in vascular malformations [J]. Tech Vasc Interv Radiol, 2019, 22(4):100635.
- [17] 贾炎坤, 李超, 杨磊, 等. 铜针埋置术治疗巨大静脉畸形效果研究 [J]. 中国美容医学, 2019, 28(12):14-16.
- [18] Mayhew AC, Rytting H, Olson TA, et al. Vaginal yolk sac tumor: a case series and review of the literature [J]. J Pediatr Adolesc Gynecol, 2021, 34(1):54-60. e4.
- [19] Rescorla FJ. Pediatric germ cell tumors [J]. Semin Pediatr Surg, 2012, 21(1):51-60.
- [20] Yin M, Yang J, Wang T, et al. Primary vaginal endodermal sinus tumor in infants and children: experience from a tertiary center [J]. BMC Pediatr, 2022, 22(1):579.
- [21] Lightfoot MA, Bilgutay AN, Kirsch AJ. A rare case of pediatric vaginal yolk sac tumor [J]. Urology, 2018, 119:137-139.
- [22] 张炳, 张锦娜, 张荣, 等. 14例婴幼儿阴道卵黄囊瘤的临床分析 [J]. 中国妇产科临床杂志, 2022, 23(6):587-590.
- [23] 罗婷, 陈奎生, 王帅元, 等. 婴幼儿阴道卵黄囊瘤6例临床病理特征分析 [J]. 临床与实验病理学杂志, 2023, 39(8):991-994.
- [24] 王涛, 曹冬焱, 俞梅, 等. 幼女原发性阴道内胚窦瘤21例临床分析 [J]. 山东大学学报(医学版), 2018, 56(5):41-45.
- [25] 于梦婷, 秦娟. 阴道卵黄囊瘤2例并文献复习 [J]. 肿瘤预防与治疗, 2022, 35(10):945-950.
- [26] Mishra V, Jain S, Malhotra P, et al. Primary orbital yolk sac tumor in an infant: a rare entity [J]. Indian Journal of Pathology Microbiology, 2023, 66(3):652-654.
- [27] Zhaoyi M, Defu L, Chao L, et al. Vaginal tumours in childhood: a descriptive analysis from a large paediatric medical centre [J]. Pediatric Surgery International, 2022, 38(6):927-934.
- [28] Jones P, Juliebo SØ, Hawary A. Pelvic arteriovenous malformation causing haematuria [J]. Br J Hosp Med (Lond), 2020, 81(11):1.
- [29] 郑荣芳, 张芸中, 郭钰珍. 阴道内镜诊治青春期前儿童妇科疾病49例临床分析 [J]. 中国妇产科临床杂志, 2022, 23(4):343-346.
- [30] 王庚. 宫腔镜诊治幼女阴道异物及阴道炎的临床观察 [J]. 中国医药指南, 2019, 17(12):134-135.
- [31] Arora M, Shrivastav RK, Jaiprakash MP. A rare germ-cell tumor site: vaginal endodermal sinus tumor [J]. Pediatr Surg Int, 2002, 18(5-6):521-523.
- [32] 李卫华, 曹冬焱, 沈铿, 等. 幼少女原发性阴道恶性肿瘤25例临床特点 [J]. 协和医学杂志, 2016, 7(4):269-274.
- [33] Nayak S, Witchel SF, Sanfilippo JS. Vaginal foreign body: a delayed diagnosis [J]. J Pediatr Adolesc Gynecol, 2014, 27(6):e127-e129.

(收稿日期:2024-03-21 编辑:陈郢霖)