

· 论著 ·

双侧输尿管巨大囊肿脱垂至尿道口伴急性肾功能不全1例并文献复习*

陈杰勋 王 恺 陈冬明 祝 帅 王 冬 许贤林*
南京医科大学附属逸夫医院泌尿外科 (江苏 南京 21000)

【摘要】目的 加强对输尿管囊肿不典型临床表现的认识, 提高诊疗水平。方法 回顾性分析1例双侧输尿管巨大囊肿患者的临床资料、治疗方案和随访结果, 并结合国内外文献探讨输尿管巨大囊肿脱垂至尿道外口、导致梗阻性急性肾功能不全的发病和诊疗状况。结果 患者因“尿频、尿急、尿痛4天, 发现尿道外口肿物7小时”入院。患者入院后少尿、肌酐进行性升高, 术前诊断为尿道旁囊肿、双肾积水、急性肾功能不全、急性肾盂肾炎, 术中诊断为双侧输尿管囊肿伴双肾积水、急性肾功能不全、急性肾盂肾炎, 予以等离子电切治疗, 术后恢复良好, 尿量、肌酐逐渐恢复正常。结论 双侧输尿管囊肿中一侧输尿管囊肿脱出尿道外口, 应注意与其他尿道口赘生物疾病的鉴别诊断。输尿管囊肿脱垂导致的急性肾功能不全并不常见, 及时治疗、解除尿道梗阻可获得较好的疗效。

【关键词】输尿管囊肿; 尿道旁囊肿; 急性肾功能不全; 经尿道等离子电切术

【中图分类号】R733.2

【文献标识码】A

【基金项目】南京医科大学科技发展基金项目(NMUB2019084)

DOI:10.3969/j.issn.1009-3257.2023.01.001

Bilateral Giant Ureteroceles Prolapsed to Urethral Orifice Accompanied with Acute Kidney Injury: A Case of and Literature Review*

CHEN Jie-xun, WANG Kai, CHEN Dong-ming, ZHU Shuai, WANG Dong, XU Xian-lin*.

Department of Urological Surgical, Sir Run Run Hospital, Nanjing Medical University, Nanjing 21000, Jiangsu Province, China

Abstract: *Objective* To extend the understanding of atypical clinical symptoms of ureterocele and improve clinical diagnosis and treatment. *Methods* The clinical data, treatment plan and follow-up results of current case were retrospectively analyzed. The incidence, diagnosis and treatment of obstructive acute renal injury caused by prolapsed ureteroceles were discussed with literature reports. *Results* The patient was admitted to the hospital due to "urinary frequency, urgency, and odynuria for 4 days with urethral orifice neoplasm for 7 hours". After admission, oliguria and creatinine increasement were aggravated. The preoperative diagnosis were paraurethral cyst, bilateral hydronephrosis, acute renal injury and acute pyelonephritis. The intraoperative diagnosis were bilateral ureteral cyst with hydronephrosis, acute renal injury and acute pyelonephritis. The patient underwent plasma-kinetic electric resection treatment and recovered well from operation, meanwhile the urine volume and creatinine gradually recovered. *Conclusion* Bilateral ureteroceles prolapsed to urethral orifice were rare situation which should be paid attention to the differential diagnosis from other neoplasm diseases. Acute kidney injury caused by ureteroceles were uncommon, while timely treatment could relief urethral obstruction and obtain effective treatment.

Keywords: Ureterocele; Urethral Orifice; Acute Kidney Injury; Transurethral Resection of Ureterocele

双侧输尿管囊肿其中右侧输尿管囊肿脱出尿道口伴急性肾功能不全极为罕见, 容易造成误诊为尿道口肿物, 造成不必要的损害。本文报道1例误诊为尿道旁囊肿的双侧输尿管囊肿伴急性肾功能不全的治疗经过, 结合国内外文献进行探讨其临床特点、诊断和治疗方法, 提高对该疾病的认识。

1 临床资料

患者女性, 49岁, 2021年11月22日因“尿频、尿急、尿痛4天, 发现尿道外口肿物7小时”入院。患者4天前劳累后出现尿频、尿急、尿痛, 伴发热(最高体温不详)、排尿费力、双侧腰痛, 无恶心呕吐, 无头痛头晕, 无腹痛腹泻, 就诊于郭庄卫生院, 行泌尿系彩超示: 双侧轻度肾积水。尿常规示: 白细胞酯酶(3+)、白细胞计数2652/μL、红细胞计数 50.1/μL。血常规示: 白细胞数目 $11.65 \times 10^9/L$ 、中性粒细胞百分比 89%。肾功能示: 肌酐 $68 \mu\text{mol/L}$ 、尿素氮 2.86mmol/L 。诊断为急性肾盂肾炎、双肾积水, 予以头孢类抗感染, 体温降至正常, 仍有排尿费力、双侧腰痛。7小时前患者小便时感觉排尿费力较前明显加重, 发现尿道外口一肿物约鸡蛋大小, 伴疼痛, 小便无法自解, 遂就诊于我院急诊, 急诊拟以“尿道口肿物”收住入院。

入院后查体: 生命体征平稳, 腹平软, 无压痛及反跳痛, 双肾区无隆起, 双肾区叩击痛(+), 双侧输尿管行径区压痛(-), 耻骨上

膀胱充盈、叩诊呈浊音, 尿道处可见一大约 $5 \times 5 \text{cm}$ 肿物, 表面光滑呈紫黑色, 触痛阳性, 质稍硬, 无法推入膀胱内, 阴毛分布均匀。辅助检查: 泌尿系CTU示: 双侧输尿管全程及双侧肾盂肾盏积水扩张(见图1A), 造影剂排泄延迟, 右侧为甚, 左侧肾周见造影剂外渗; 膀胱内未见造影剂充盈; 尿道口后方低密度影, 囊肿?(见图2A)。肾功能: 肌酐 $108 \mu\text{mol/L}$ (参考区间 $41 \sim 73 \mu\text{mol/L}$)、尿素氮 3.06mmol/L (参考区间 $2.6 \sim 7.5 \text{mmol/L}$), 血常规、肝功能、电解质、凝血全套、传染病八项、子宫附件彩超未见异常。

治疗经过: 因患者小便无法自解, 予以留置导尿管, 导出尿液200ml, 并记24小时尿量, 予以抗感染、补液等治疗。患者肌酐进行性升高、尿量减少, 并出现纳差、恶心呕吐等消化道症状。与患者沟通后, 排除手术禁忌症, 于2021年11月25日在全麻下拟行“尿道病损切除术+经尿道双侧输尿管镜探查术”, 具体步骤如下: 患者麻醉满意后, 拔除导尿管, 取截石位, 常规消毒铺巾, 见尿道外口一紫黑色肿物大约 $5 \times 5 \text{cm}$ (见图3A); 经尿道置入输尿管镜, 进镜顺利, 探查膀胱各壁未见明显新生物, 双侧输尿管开口未见, 输尿管脊不明显, 膀胱内可见小梁形成, 遂更换膀胱镜, 观察10min后见膀胱颈口左侧一囊性凸起大约 $3 \times 3 \text{cm}$, 考虑为左侧输尿管开口囊肿(见图4A), 仔细观察后见囊肿表面针尖样输尿管开口, 顺利置入斑马导丝, 再次更换输尿管镜沿斑马导丝上行至肾盂, 退出输尿管镜, 顺利留置F6双J管,

【第一作者】陈杰勋, 男, 主治医师, 主要研究方向: 泌尿系肿瘤。E-mail: cjx128619@yeah.net

【通讯作者】许贤林, 男, 主任医师, 主要研究方向: 肾移植及泌尿系肿瘤。E-mail: xianlinxu@njmu.edu.cn

右侧输尿管开口仍未见；退出输尿管镜，用手按压尿道外口肿物后，观察尿道外口肿物逐渐回缩至尿道内(见图3B)，用输尿管镜将尿道外口肿物推入膀胱内，见右侧输尿管开口位置囊性肿物，考虑为右侧输尿管口囊肿(见图5A)；更换等离子电切镜，先将右侧输尿管开口囊肿电切，见右侧输尿管开口较大(见图5B)，遂未留置双J管，再沿左侧双J管周围电切左侧输尿管囊肿(见图4B)，彻底止血；退出电切镜，留置导尿管一根。

2 结果及随访

手术顺利，术中更换手术方式为“经尿道双侧输尿管囊肿等离子电切术+左侧双J管置入术”，手术时间为40min，术后予以抗感染、补液治疗，术后3天拔除导尿管、4周拔除左侧双J管，术后肌酐、尿量逐渐恢复正常，双侧腰痛消失，排尿正常。术后病理示：输尿管慢性炎症伴糜烂，官腔囊状扩张，管壁间质出血。术后随访4个月，患者无腰痛、无尿频、尿急、尿痛，复查尿常规、肾功能正常，复查CT双肾未见明显积水(见图1B)、尿道后方囊肿消失(见图2B)。患者诊治过程肌酐变化见图6。

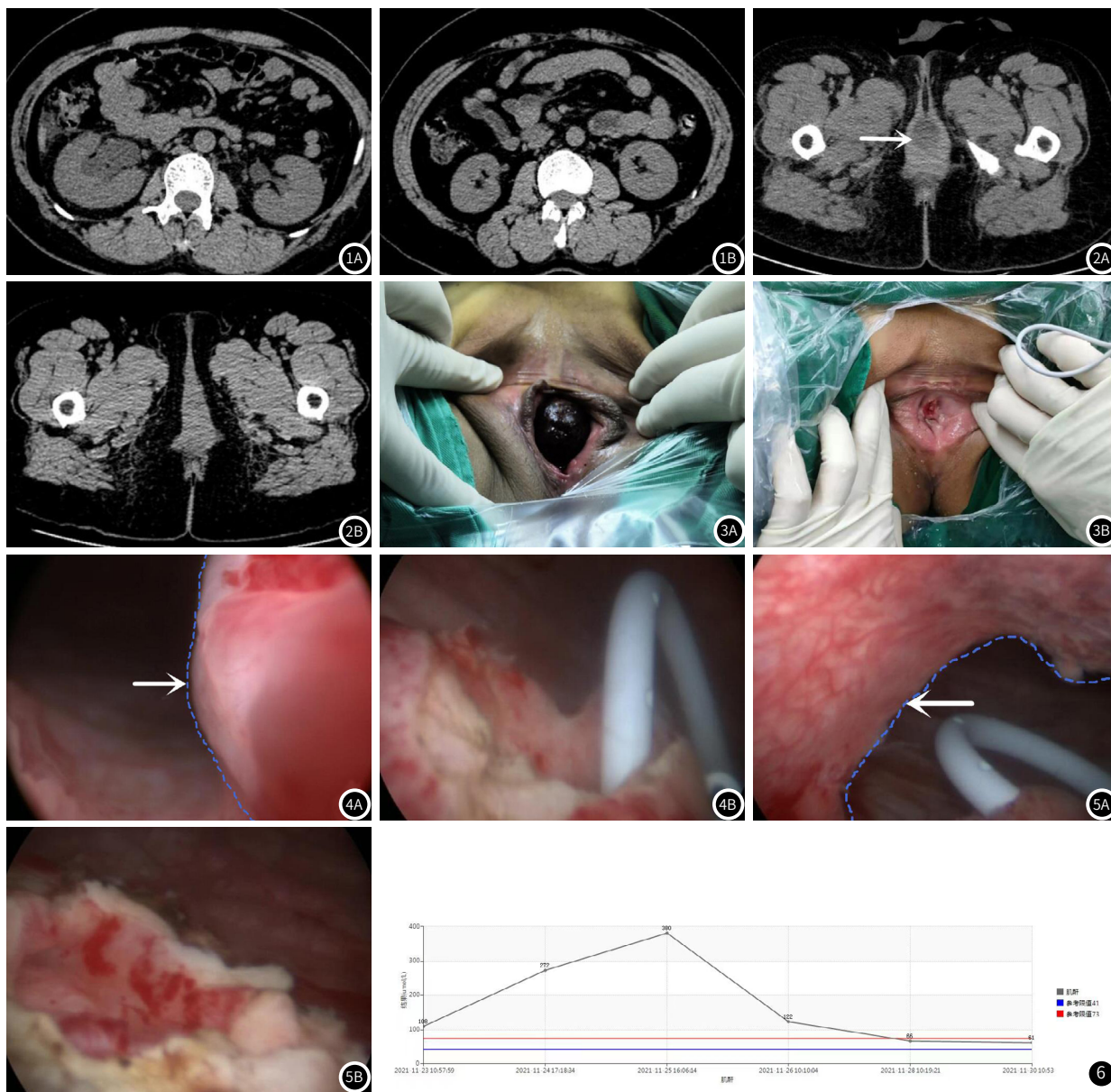


图1 图1A: 为术前CTU提示双肾积水及双侧输尿管扩张; 图1B: 为术后复查CT见双肾积水及双侧输尿管扩张消失。图2 图2A: 为术前CTU示尿道后方低密度影, 囊肿可能(白色箭头所指); 图2B: 为术后复查CT未见囊肿影。图3 图3A: 为术前尿道外口可见一大小约5*5cm紫黑色肿物; 图3B: 为术中按压后尿道外口肿物缩回至膀胱内。图4 图4A: 为术中见左侧输尿管口巨大囊肿(白色箭头所指); 图4B: 为术后左侧输尿管开口。图5 图5A: 为术中见右侧输尿管口巨大囊肿(白色箭头所指); 图5B: 为术后右侧输尿管开口。图6 术前肌酐逐渐上升, 术后肌酐降至正常。

3 讨论

3.1 输尿管囊肿的病因及流行病学 输尿管囊肿也称为输尿管膨出, 是一种先天性疾病, 指膀胱黏膜下输尿管末端的囊性扩张, 1912年Leshnew最先描述^[1]。输尿管囊肿的形成机制尚未明确, 目前认为形成的原因有以下几点: (1)胚胎时期Chwalle膜在胚胎6周后未被吸收或者吸收不完全导致尿液排出障碍而引起输尿管囊肿; (2)膀胱内输尿管肌层发育异常导致输尿管囊肿; (3)输尿管膀胱壁内端过长、走行路径弯曲或倾斜度过大, 亦可造成尿液排

泄不畅, 从而形成输尿管囊肿; (4)输尿管口的炎症、结石导致输尿管末端狭窄、梗阻, 尿液长时间冲洗最终形成囊肿^[2,15]。输尿管囊肿的分类, 根据解剖位置分类, 分为膀胱内输尿管膨出或膀胱外输尿管膨出。膀胱外输尿管膨出占输尿管囊肿的绝大部分, 多见于儿童, 常合并重复肾输尿管畸形; 膀胱内输尿管膨出少见, 又称成人输尿管囊肿。根据输尿管口本身的开放程度分类, 分为狭窄型、括约肌型、外括约肌狭窄型、盲袋型输尿管膨出、盲端型以及无梗阻的输尿管腔膨出^[3]。输尿管囊肿较为少见, 其

发病率约为1/5000-1/12000,男女比例约1:4~7,约10%为双侧囊肿^[4]。输尿管囊肿脱出尿道十分罕见,约5%的输尿管囊肿可能脱出尿道(多见于女性新生儿,常合并重复肾双侧输尿管畸形),目前检索国内外文献共报道100余例输尿管囊肿脱出,其中成人双侧输尿管囊肿伴一侧输尿管囊肿脱出仅报道2例^[5-6]。据我们所知,本文报道这位患者是第1例报道成人双侧输尿管囊肿伴右侧输尿管囊肿脱出尿道引起急性肾功能不全的病例。

3.2 输尿管囊肿的临床表现及诊断 输尿管囊肿的临床表现不尽相同,部分患者可无症状,严重者因尿液引流不畅导致输尿管扩张、肾盂积水,出现泌尿道感染,长时间梗阻进而出现肾功能损害,表现为尿频、尿急、尿痛、腰痛、尿失禁、尿潴留等症状^[7]。本例患者最初表现为急性肾盂肾炎,后因右侧输尿管囊肿脱出尿道以致于尿路梗阻引起双肾积水,进而造成急性肾功能不全。结合本病例,本文认为输尿管囊肿脱出尿道的典型临床表现为女性排尿费力后出现尿道口肿物伴肾积水。输尿管囊肿脱出尿道可能与输尿管囊肿过大、腹压增大以及女性尿道短有关。文献中大部分患者输尿管囊肿脱出尿道口后可回缩至膀胱内,本例患者入院时尿道口肿物不能推入膀胱内,麻醉后能推入膀胱内,可能与麻醉后患者尿道平滑肌松弛、病人无疼痛感觉有关。

输尿管囊肿的临床症状多样性,成人输尿管囊肿的诊断,主要依据临床症状和体征,结合B超、静脉肾盂造影、CT或MRI、膀胱镜检查等^[10]。超声检查具有快捷、方便、无痛苦等优点,是输尿管囊肿初诊的首选方法,B超检查表现为在输尿管开口处能探及圆形含液光环,并随输尿管蠕动呈周期性变大及缩小^[11]。IVU其典型表现为输尿管末端圆形或类圆形实影,周围有透明环,呈“眼睛蛇头”征或“晕轮”征^[12]。随着科技水平的发展,静脉肾盂造影逐渐被CTU、MRI等影像技术所代替,将不再作为常规检查方式^[13]。CTU表现为平扫期呈输尿管开口处膀胱内囊壁厚度均匀一致的圆形或椭圆形低密度影,排泄期囊内密度显著增高,且在一段时间内高于膀胱内密度;并且能了解解剖结构、肾积水程度以及评价肾功能^[14]。膀胱镜下诊断率达100%,镜下可见输尿管口圆形或椭圆形囊肿,囊壁覆盖膀胱黏膜,呈半透明状,随输尿管蠕动,可见膨胀或回缩,个别囊肿表面可见细小开口,同时可镜下与膀胱肿瘤等鉴别诊断^[15]。本例患者超声及CTU检查均未提示囊肿与尿道及输尿管的关系,可能与输尿管囊肿直径较大,每次蠕动的尿液不足以充满较大的囊肿腔,节律性的变大或者缩小现象反而不明显^[16]。本例患者双肾及输尿管扩张积水且急性肾功能不全,因无创影像学检查未能明确病因,最终通过内镜检查得以确诊。

输尿管囊肿脱出尿道时容易造成误诊,需要与以下疾病相鉴别^[2,8-9]:(1)尿道旁腺囊肿:囊肿呈淡黄色卵圆形,位于尿道下方或侧下方,可见尿道口推向一侧,当伴有排尿困难时需要与输尿管囊肿脱垂相鉴别,泌尿系B超及内镜检查可鉴别;(2)尿道肉阜:多见于绝经后女性,为淡红、易出血的实性肿物,多位于尿道后方6点方向,直径一般不超过1cm;(3)尿道黏膜脱出:为尿道周围3至9点方向半环形肿物,中央有凹陷,造影可鉴别;(4)尿道息肉:细长的尿道息肉可脱出尿道口,为实性红色肿物,其蒂在尿道深部,内镜检查可鉴别;(5)阴道壁囊肿:阴道壁囊肿位于阴道前壁可能与输尿管囊肿脱出尿道相混淆,仔细查体及经阴道彩超有助于鉴别。

3.3 成人输尿管囊肿的治疗原则 成人输尿管囊肿的治疗原则是控制感染、解除梗阻、保护肾功能、防止尿液反流^[17]。治疗方式多种多样,如无明显临床症状及肾积水,可采用动态观察保守治疗。如出现临床症状或肾积水,则手术是唯一治疗有效的方法。以往多采用经膀胱输尿管囊肿切除术加输尿管再植术,开放手术创伤大、恢复慢,随腔镜技术不断发展,现在主要手术方式采用经尿道输尿管囊肿切除术,具体手术方式也是多种多样,包括

经尿道输尿管囊肿电切术、经尿道输尿管钬激光切除术、经尿道绿激光切除术、经尿道钬激光切除术等^[7,10,18-19]。邹义华^[20]等报道了18例成人膀胱内型输尿管囊肿经尿道电切术,一次成功率为94.4%(17/18),术后无输尿管反流。本例患者因术中诊断为双侧输尿管囊肿,遂行双侧输尿管囊肿电切术,术后当日尿量达1600mL,第2日复查肾功能降至122μmol/L,术后恢复良好。输尿管囊肿治疗术后随访的主要内容为膀胱输尿管有无反流及囊肿复发,术中电切囊肿时保留部分囊壁,可达到抗反流的效果。本例患者随访4月查尿常规、肾功能正常,CT检查示术后双肾积水及囊肿消失,患者也无尿频、尿急、尿痛及腰痛等症状,说明无膀胱输尿管反流,同时也证实经尿道输尿管囊肿等离子电切术是一种创伤极小、手术效果好且并发症少的治疗手段。

3.4 诊治体会 对于成年女性尿道外口肿物伴肾积水患者应警惕输尿管囊肿脱出可能,以免误漏诊。输尿管囊肿脱出尿道并不常见,需与其他尿道口肿物疾病相鉴别,不应局限于尿道附近的常见病,而应拓展临床思维,根据病人临床症状及各种合适检查方法综合判断。输尿管囊肿脱出尿道口,导致急性梗阻性肾功能不全在既往的临床实践中极为罕见,经手术治疗后解除尿路梗阻,使患者肾功能和尿量恢复正常,及时的治疗可获得满意的治疗效果。

参考文献

- [1]Merlini E, Lelli Chiesa P. Obstructive ureterocele—an ongoing challenge[J]. World J Urol, 2004, 22 (2): 107-114.
- [2]孙颖浩. 输尿管畸形. 吴阶平泌尿外科科学[M]. 北京: 人民卫生出版社, 2019: 2099.
- [3]Seth J H, Walker R. Case of acute severe postpartum urinary incontinence: An extravasate subsphincteric prolapsed ureterocele[J]. BMJ Case Rep, 2018: bcr2017220290.
- [4]Campobasso D, Lanzi A, Pozzoli G L, et al. Prolapsed ureterocele in an adult woman after endoscopic incision[J]. Urol Ann, 2018, 10 (1): 100-102.
- [5]Florian L, Stefan P, Mark M. A prolapsed cecoureterocele in an adult treated conservatively: Highly rare, but existent[J]. Case Rep Urol, 2016: 5049072.
- [6]Rompré-Brodeur A, Andonian S. Adult bilateral ureteroceles presenting with lower urinary tract symptoms and acute urinary retention[J]. Case Rep Urol, 2018: 3186060.
- [7]李开升, 李贺, 张猛, 等. 经膀胱镜钬激光筛孔状开窗术治疗儿童输尿管囊肿的临床疗效[J]. 腹腔镜外科杂志, 2020, 25 (7): 540-542.
- [8]廖国芳. 输尿管囊肿误诊为阴道壁囊肿1例[J]. 实用妇产科杂志, 2016, 32 (12): 957.
- [9]刘家辉, 张际青, 苟举民, 等. 成人输尿管囊肿脱出的鉴别诊断(附1例误诊报告)[J]. 临床误诊误治, 2008 (1): 76-77.
- [10]钟瑞伦, 陈波特, 张化儒, 等. 经尿道直出绿激光汽化术和经尿道电切术治疗直径<3cm输尿管囊肿患者安全性和有效性的比较研究[J]. 临床泌尿外科杂志, 2019, 34 (11): 879-882, 887.
- [11]卞剑云, 张玉琴, 赵素芳, 等. 成人输尿管囊肿的影像学表现(附12例报告)[J]. 现代医学影像学, 2006 (1): 15-16.
- [12]顾鹏, 何晓亮, 章民昊, 等. 尿路上皮癌表现为输尿管囊肿一例报告[J]. 中华腔镜泌尿外科杂志(电子版), 2015, 9 (4): 304-305.
- [13]林峰, 闫志豪, 张伟子, 等. 静脉肾盂造影在小儿肾、输尿管重复畸形伴输尿管囊肿的应用[J]. 影像技术, 2020, 32 (6): 22-23.
- [14]何代均, 周国, 吴建青, 等. 成人单纯型输尿管囊肿影像学诊断1例[J]. 人民军医, 2018, 61 (1): 74-76.
- [15]张雷, 伯晓宁, 周建博. 双侧输尿管口囊肿合并囊内结石1例并文献复习[J]. 临床与病理杂志, 2017, 37 (3): 646-648.
- [16]王光春, 朱巍, 朱凯, 等. 成人输尿管囊肿合并结石误诊膀胱肿瘤一例报告[J]. 中华腔镜泌尿外科杂志(电子版), 2013, 7 (5): 62-63.
- [17]石松山, 赵先诚, 田闯, 等. 成人双侧输尿管囊肿并右侧囊内结石一例并文献复习[J]. 海南医学, 2016, 27 (7): 1190-1191.
- [18]王宇扬, 刘杨文易, 颜汝平. 经尿道钬激光治疗成人输尿管囊肿(附23例报告)[J]. 微创泌尿外科杂志, 2018, 7 (3): 185-187.
- [19]徐建新, 朱涛, 方登攀. 经尿道等离子电切术治疗输尿管囊肿的临床效果观察[J]. 国际泌尿系统杂志, 2020 (3): 530-532.
- [20]邹义华, 陈晓峰, 陈善群. 经尿道电切术治疗成人膀胱内型输尿管囊肿18例报告[J]. 微创泌尿外科杂志, 2016, 5 (5): 268-270.

(收稿日期: 2022-06-07)

(校对编辑: 阮 靖)