

· 病例报告 ·

儿童膀胱内翻性乳头状瘤合并膀胱结石 1 例



全文二维码

刘丽丽 王晓佳 陈子英 许海华 刘晓博 徐国栋

天津市儿童医院泌尿外科, 天津 300000

通信作者: 徐国栋, Email: dongyan615@163.com

A case report of pediatric inverted papilloma of the bladder with bladder stone

Liu Lili, Wang Xiaojia, Chen Ziyang, Xu Haihua, Liu Xiaobo, Xu Guodong

Department of Urology, Tianjin Children's Hospital, Tianjin 300000, China

Corresponding author: Xu Guodong, Email: dongyan615@163.com

【摘要】 膀胱内翻性乳头状瘤 (inverted papilloma of bladder, IPB) 是一种罕见的良性肿瘤, 儿童 IPB 更为罕见。天津市儿童医院收治 1 例膀胱内翻性乳头状瘤合并膀胱结石患儿, 经尿道膀胱镜检查后, 考虑膀胱肿瘤位于左侧输尿管开口处, 遂行膀胱肿瘤切除、左侧输尿管膀胱再吻合、膀胱造瘘以及膀胱切开取石治疗, 术后恢复良好, 随访 18 个月未见肿瘤复发。

【关键词】 乳头状瘤, 内翻/外科学; 膀胱/损伤; 膀胱结石/外科学

DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202102021-020

患儿男, 1 岁 4 个月, 因间断肉眼血尿 39 h 于 2020 年 5 月 7 日入院。入院前曾于附近医院就诊, 发现全程血尿, 伴轻度漏尿, 尿常规检查提示潜血 (++)、白细胞 (++)。转往天津市儿童医院急诊外科就诊, B 超检查提示膀胱实性包块, 膀胱强回声斑, 考虑“膀胱肿瘤、膀胱结石”, 建议住院治疗, 但家属拒绝住院, 仅接受口服消炎药物治疗。后因排尿困难再次于本院急诊外科就诊, B 超提示后尿道内强回声斑, 膀胱内中低回声肿块, 考虑结石可能, 予急诊导尿后收住院治疗。入院诊断: 膀胱占位、膀胱结石、泌尿系统感染。

专科查体: 腹软, 腹部无明显压痛, 肾区叩痛阴性。外阴、阴茎发育尚可, 包皮外口稍红, 不能上翻外露阴茎头, 双侧阴囊内可扪及睾丸。尿管引流通畅, 尿色清亮, 未见肉眼血尿。增强 CT 检查提示膀胱左后壁增厚, 伴软组织密度肿块突入腔内, 增强后轻度强化, 膀胱颈水平呈类圆形高密度影, 考虑为结石。尿常规提示潜血 (++)、白细胞 (+), 尿蛋白 (+); 血甲胎蛋白 4.18 ng/mL。

于全身麻醉下行经尿道膀胱镜检查, 膀胱内见一黄色结石 (图 1 中 A), 直径约 10 mm; 右侧输尿管开口位置正常, 左侧输尿管口显示不清, 原左侧输尿管开口处可见菜花样肿物 (图 1 中 B) 向膀胱内凸出, 黏膜充血; 予钳取活检, 术中冰冻病理报告为乳头状增生的移行上皮及纤维组织。考虑肿物位于膀胱三角区, 与左侧输尿管关系密切, 遂行下腹部横皮纹切口, 纵分腹直肌, 腹膜外暴露膀胱。将膀胱纵行切开, 取出结石, 左侧输尿管开口处见肿物, 长径约 1.5 cm, 呈菜花样, 表面黏膜充血, 肿物表面中央可见左侧输尿管开口, 插入输尿管导管, 予右侧保护, 左侧引导, 沿肿物边缘 2 cm 环切肿物及左侧输尿管开口, 完整剪除肿物并沿管壁游离部分输

尿管, 切除组织送病理检查; 左侧输尿管行膀胱输尿管再吻合术。术后病理结果: 膀胱左后壁考虑内翻性乳头状瘤, 局灶细胞增生稍活跃, 建议随访复查 (图 2)。结石成分分析显示: 一水草酸钙占 80%, 二水草酸钙占 20%。术后定期随访 18 个月, 复查泌尿系统 B 超及尿常规, 未见明显异常。

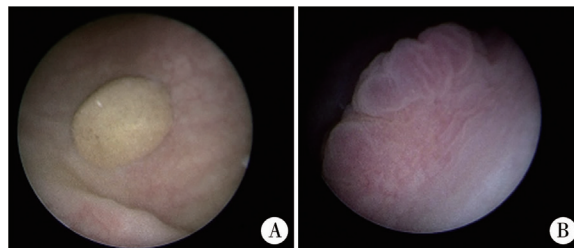


图 1 膀胱内翻性乳头状瘤合并膀胱结石患儿膀胱镜下膀胱肿瘤及膀胱结石的形态图片 A: 膀胱结石呈黄色, 直径约 10 mm; B: 肿瘤表面呈分叶结节状, 基底部有蒂

Fig. 1 Morphology of papillomatous tumor and bladder stones under cystoscopy

讨论 膀胱内翻性乳头状瘤 (inverted papilloma of bladder, IPB) 是一种临床上罕见的良性尿路上皮肿瘤, 呈内翻性生长, 1927 年被 Paschkis 首次定义为“息肉状腺瘤”, 1963 年 Potts 和 Hirst 将其重新定义为“膀胱内翻性乳头状瘤”。病理学家根据世界卫生组织 2004 年版“泌尿系统和男性生殖系统肿瘤分类法”对尿路病变进行分类, 将 IPB 归类为非浸润性尿路上皮肿瘤^[1]。IPB 在尿路上皮肿瘤中的发病率较低, 常见于 60~70 岁的老年人, 男女发病比例为 7.3:1^[2]。儿童 IPB 发病率极低, 目前报道病例最小年龄为 3 岁^[3]。儿童膀胱内翻性乳头状瘤合并泌尿系统结石目前尚未见报道。

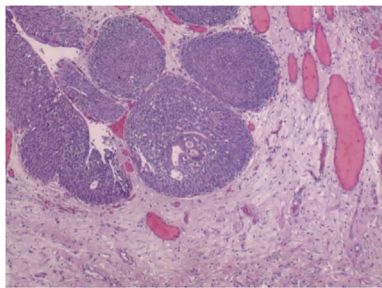


图2 膀胱内翻性乳头状瘤镜下图片(HE染色, ×100) 注 肿瘤界限清楚,表面被覆移行上皮,肿瘤细胞呈内生性生长,上皮细胞形成巢状结构,瘤组织无纤维血管轴心,周围细胞呈栅栏状排列

Fig.2 Histopathological examination of specimen confirmed as inverted urothelial papilloma (HE, ×100)

IPB 可发生在所有尿路上皮覆盖的器官中,最常见于膀胱三角区或膀胱颈,很少见于上尿路^[4]。大多数患儿以肉眼血尿为首发症状,其他临床表现包括膀胱刺激症状(排尿困难,尿频,尿急)、尿路梗阻、腹痛、发热及呕吐等^[5]。IPB 的病因目前尚未明确,通常被认为是一种增生性疾病,与吸烟、慢性膀胱炎症及泌尿道梗阻有关^[6]。本例患儿1岁4个月,无吸烟及烟草接触史,无泌尿系统结构异常,术中探查可见膀胱结石,不排除因泌尿系统结石反复炎性刺激导致膀胱内翻性乳头状瘤发生的可能。

近年来,儿童泌尿系统结石的患病率逐年上升,且结石成分与成人患者相似,最常见成分是草酸钙,其次是磷酸钙,年龄、性别以及地域可影响结石成分^[7]。儿童泌尿系统结石的形成与代谢异常、结石家族史、饮食习惯、肥胖、泌尿系统感染、解剖结构异常等因素有关^[8-12]。增加饮水量以及水果和蔬菜的摄入量、低盐饮食可以预防结石形成,枸橼酸盐类药物可碱化尿液、溶石和预防结石^[12]。研究表明,泌尿系统结石患儿罹患膀胱肿瘤的概率明显增加,与泌尿系统结石相关的慢性刺激和炎症可能引起局部环境改变,并导致尿路上皮增殖和膀胱肿瘤的发展^[13-14]。

膀胱内翻性乳头状瘤的术前诊断率极低,且无敏感的放射学诊断方法,患儿通常以无痛性血尿就诊。泌尿系统 B 超检查无创、便捷,可作为早期筛查及术后随访的方法之一。目前 IPB 的主要治疗方法是经尿道膀胱肿瘤切除术(transurethral resection of bladder, TURB),术后复发率(1%~7%)及恶变率(1.5%)低^[15]。手术中应切除肿瘤及其周边 2 cm,并切至浅肌层,但应避免切至深肌层,以免造成膀胱穿孔。本例患儿经尿道镜检查发现肿瘤位于左侧输尿管开口处,故行膀胱肿瘤切除术及左侧输尿管膀胱再吻合术。

近年研究表明,IPB 可能是导致尿路上皮癌的危险因素^[16]。但欧洲泌尿外科协会指南表明,治疗 IPB 的金标准是完整切除肿瘤,术后需定期复查。因 IPB 有低度恶性可能,有学者认为术后常规膀胱灌注化疗有助于降低肿瘤复发的概率,但根据文献资料,膀胱灌注化疗不作为儿童患者的常规治疗。术后随访内容包括:术后早期每 3~6 个月行泌

尿系统 B 超检查 1 次,有可疑情况时,需行膀胱镜检查,必要时行病理活检;术后 3 年若无异常情况,则每年行 1 次泌尿系统影像学检查,一旦发生异常情况,需行膀胱镜检查以明确诊断,必要时行病理组织活检^[17]。

综上所述,IPB 在儿童中发病率极低,患儿多以间歇性肉眼血尿、尿路梗阻等为首发症状就诊,应尽早诊断和治疗,需完整切除肿瘤并给予早期、密切随访。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

作者贡献声明 文献检索为王晓佳、陈子英、许海华、刘晓博,病例讨论分析为刘丽丽、徐国栋

参 考 文 献

- [1] Wang G, McKenney JK. Urinary bladder pathology: World Health Organization classification and American Joint Committee on Cancer Staging Update [J]. Arch Pathol Lab Med, 2019, 143 (5): 571-577. DOI: 10. 5858/arpa. 2017-0539-RA.
- [2] Ho L, Jones E, Kavanagh A. Benign inverted papilloma at bladder neck causing acute urinary retention [J]. J Surg Case Rep, 2018, 2018 (6): rjy125. DOI: 10. 1093/jscr/rjy125.
- [3] Berrettini A, Castagnetti M, Salerno A, et al. Bladder urothelial neoplasms in pediatric age: experience at three tertiary centers [J]. J Pediatr Urol, 2015, 11 (1): 26. e1-e5. DOI: 10. 1016/j. jpurol. 2014. 08. 008.
- [4] Jørgensen PH, Vainer B, Hermann GG. A clinical and molecular review of inverted papilloma of the urinary tract: how to handle? [J]. APMIS, 2015, 123 (11): 920-929. DOI: 10. 1111/apm. 12456.
- [5] Chu S, Singer J. Transitional cell carcinoma in the pediatric patient: a review of the literature [J]. Urology, 2016, 91: 175-179. DOI: 10. 1016/j. urology. 2015. 12. 032.
- [6] Guo A, Liu A, Teng X. The pathology of urinary bladder lesions with an inverted growth pattern [J]. Chin J Cancer Res, 2016, 28 (1): 107-121. DOI: 10. 3978/j. issn. 1000-9604. 2016. 02. 01.
- [7] 丛小明, 孙西钊. 儿童泌尿系统结石的代谢评估 [J]. 临床小儿外科杂志, 2020, 19 (8): 661-665. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671-6353. 2020. 08. 001.
- [8] Cong XM, Sun XZ. Metabolic evaluations of pediatric nephrolithiasis [J]. J Clin Ped Sur, 2020, 19 (8): 661-665. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671-6353. 2020. 08. 001.
- [9] Sas DJ, Hulsey TC, Shatat IF, et al. Increasing incidence of kidney stones in children evaluated in the emergency department [J]. J Pediatr, 2010, 157 (1): 132-137. DOI: 10. 1016/j. jped. 2010. 02. 004.
- [10] Szendrői A, Tordé Á, Vargha J, et al. Role of the diet in urinary stone formation and prevalence [J]. Orv Hetil, 2017, 158 (22): 851-855. DOI: 10. 1556/650. 2017. 30747.
- [11] Sarica K. Obesity and stones [J]. Curr Opin Urol, 2019, 29 (1): 27-32. DOI: 10. 1097/MOU. 0000000000000557.
- [12] 中华医学会泌尿外科学分会结石学组, 中国泌尿系结石联盟. 儿童泌尿系结石诊疗中国专家共识 [J]. 中华泌尿外科杂志, 2021, 42 (2): 81-88. DOI: 10. 3760/cma. j. cn112330-20210111-00017.
- [13] Calculus Group, Urology Branch, Chinese Medical Association, Chinese Urolithiasis Alliance; Chinese Expert Consensus on Diagnosing and Treating Pediatric Urolithiasis [J]. Chinese Journal of Urology, 2021, 42 (2): 81-88. DOI: 10. 3760/cma. j. cn112330-

- 20210111-00017.
- [12] 中华医学会小儿外科学分会泌尿外科学组. 儿童肾结石诊疗的临床专家共识[J]. 临床小儿外科杂志, 2021, 20(2): 107-113. DOI:10.12260/lxewkzz.2021.02.002.
- Group of Urology, Branch of Pediatric Surgery, Chinese Medical Association: Clinical Expert Consensus on Managing Kidney Stones in Children[J]. J Clin Ped Sur, 2021, 20(2): 107-113. DOI:10.12260/lxewkzz.2021.02.002.
- [13] Yu Z, Yue W, Jiuzhi L, et al. The risk of bladder cancer in patients with urinary calculi: a meta-analysis[J]. Urolithiasis, 2018, 46(6): 573-579. DOI:10.1007/s00240-017-1033-7.
- [14] Nesi G, Nobili S, Cai T, et al. Chronic inflammation in urothelial bladder cancer[J]. Virchows Arch, 2015, 467(6): 623-633. DOI:10.1007/s00428-015-1820-x.
- [15] Sundaram A, Gupta K, Singla S, et al. Glandular-type inverted papilloma of urinary bladder-Report of a unique case with immunohistochemistry[J]. Indian J Pathol Microbiol, 2020, 63(1): 96-97. DOI:10.4103/IJPM.IJPM_456_18.
- [16] Oshina T, Kawai T, Sato Y, et al. Inverted papilloma of the urinary bladder shows fluorescence on photodynamic diagnosis using 5-aminolevulinic acid[J]. Photodiagnosis Photodyn Ther, 2020, 30: 101766. DOI:10.1016/j.pdpdt.2020.101766.
- [17] Polat H, Utangac MM, Gulpinar MT, et al. Urothelial neoplasm of the bladder in childhood and adolescence: a rare disease[J]. Int Braz J Urol, 2016, 42(2): 242-246. DOI:10.1590/S1677-5538.IBJU.2015.0200.
- (收稿日期: 2021-02-14)
- 本文引用格式:** 刘丽丽, 王晓佳, 陈子英, 等. 儿童膀胱内翻性乳头状瘤合并膀胱结石 1 例[J]. 临床小儿外科杂志, 2022, 21(9): 898-900. DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202102021-020.
- Citing this article as:** Liu LL, Wang XJ, Chen ZY, et al. A case report of pediatric inverted papilloma of the bladder with bladder stone [J]. J Clin Ped Sur, 2022, 21(9): 898-900. DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202102021-020.

什么是队列设计

大部分小儿外科医生都很熟悉队列研究这个概念, 队列研究的定义是将人群按是否暴露于某种可疑因素及其暴露程度分为不同的亚组, 追踪其各自的结局, 比较不同亚组之间结局频率的差异, 从而判定暴露因子与结局之间有无因果关联及关联大小的一种观察性研究方法。按照患者入组情况, 可将研究队列划分为固定队列和动态队列。固定队列是指在同期开始观察, 其中一部分人暴露于某一因素, 全部人都需要经过相同的观察期限。这一要求对于一般的观察性临床研究显然过于苛刻, 很难实现。在涉及生存分析的相关队列中, 我们更常见到的是动态队列, 即在队列中, 持续的有患者进入, 也持续的有患者因出现结局事件而终止观察, 当然也有患者失访或在研究结束时仍未出现结局。从定义中我们可以看出, 队列研究本身是关注结局的发生率。但在小儿外科的临床研究中, 通过一个队列研究如果仅仅只能关注到结局事件的发生率, 研究效率是比较底下的。因此, 队列研究的过程中常会结合生存分析读数据进行进一步处理, 以提高研究价值。