

## 小儿先天性耻骨前窦道临床分析

陈琛君, 马 耿, 郭云飞, 陆如纲, 葛 征

(南京医科大学附属南京儿童医院泌尿外科, 江苏 南京 210008)

**[摘要]** 目的:分析先天性耻骨前窦道的发病率、病因、临床表现和治疗要点,提高对该病的认识及诊疗水平。方法:回顾分析本院自2008年1月~2012年8月收治的9例先天性耻骨前窦道的男性患儿。患儿均表现为阴茎根部至耻骨前区皮肤瘻口,可探及沿腹壁中线向上内方窦道。6例患者合并有窦道开口处黄白色豆腐渣样分泌物,2例合并阴茎背曲。结果:所有患儿均给予手术完整切除窦道。选择阴茎背侧根部窦道前腹壁纵行切口,给予瘻管内美兰注射显露瘻管走行,证实9例瘻管与膀胱尿道均无相连,3例窦道终止于耻骨联合上,6例终止于耻骨联合下。测得窦道平均长度 $(4.2 \pm 1.3)$ cm,直径0.3~0.8 cm。手术顺利,术中无阴茎血管神经束损伤,术后无瘻管复发,无反复尿路或皮肤感染。术后病理提示管腔内附复层鳞状上皮者5例,移行上皮者2例,可及管周平滑肌细胞者4例,较多淋巴细胞者3例。结论:先天性耻骨前窦道可能与先天性泌尿系统发育异常相关,手术切除可取得满意效果。

**[关键词]** 耻骨前窦道;先天性阴茎瘻管;重复尿道

**[中图分类号]** R726.9

**[文献标志码]** B

**[文章编号]** 1007-4368(2013)04-542-03

**doi:** 10.7655/NYDXBNS20130429

先天性耻骨前窦道 (congenital prepubic sinus, CPS)临床少见,表现为耻骨前至阴茎根部腹壁下窦道。其病因学尚不明确,国外报道的诊断名称包括:先天性耻骨前窦道、腹壁下瘻管、耻骨前皮样窦道、耻骨下皮样窦道、阴茎根部瘻管等。本院自2008年1月~2012年8月共收治CPS患儿9例,对其临床表现及诊疗方法进行总结,分析可能的病因学基础,现报告如下。

### 1 对象和方法

#### 1.1 对象

本科自2008年1月~2012年8月共收治CPS患者9例。年龄1岁8个月~9岁2个月,平均 $(59 \pm 35)$ 个月,均为男性。临床表现均可见阴茎根部开口,开口近端向腹壁中线处可及触及窦道,部分患者窦道中段可及扩张。有6例自窦道开口处排出黄白色分泌物,呈豆腐渣样,量少,挤压后明显。9例均无尿液样物质自瘻口排出,无排尿困难,无反复尿急、尿痛、尿频、尿路感染征象。2例合并有阴茎背曲。实验室检查尿常规均正常。

#### 1.2 方法

所有患者均行手术探查。选择单纯静脉麻醉或静脉基础联合气管插管吸入麻醉。瘻口近端腹壁中线纵行切口,静脉留置针自瘻口处插入,注射美兰,显露瘻管走行。沿瘻管周围仔细游离,保护阴茎背

侧血管神经束,游离至末端给予结扎完整切除窦道。术中探查见3例终端止于耻骨联合上方骨膜处,6例终端止于耻骨联合下方软组织中,未见明显穿过耻骨联合者。术后给予留置导尿,局部加压包扎。瘻管组织送病理检查。

### 2 结果

所有患者窦道均位于腹壁中线下方,逐渐走向下内侧。术中游离的窦道长度2~6 cm,平均 $(4.2 \pm 1.3)$  cm。直径0.3~0.8 cm,部分患者可及明显窦道中段膨大。给予美兰注射,证实窦道与膀胱尿道均无相连,排尿未及尿液蓝染。

术后病理提示管腔内附复层鳞状上皮者5例,移行上皮者2例,可及管周平滑肌细胞者4例,较多淋巴细胞者3例。

术后大部分患者有阴茎包皮水肿。无反复发热、局部渗出等并发症。随访9例患者无窦道复发,无反复尿路或皮肤感染。

### 3 讨论

CPS是临床罕见疾病之一,最早由Campbell报道<sup>[1]</sup>。已有报道总例数为41例(表1)。其中男25例,女16例。国内仅2例报道<sup>[2-3]</sup>。既往疾病诊断名称多样,包括CPS、腹壁下瘻管、耻骨前皮样窦道、耻骨下皮样窦道等。目前国际较统一的诊断名为CPS。尚无

明确的发病率统计。本科自 2008~2012 年共收治 9 例,且有逐年增多趋势。分析原因可能为早期对 CPS 的认识不足,且患者本身大多数无明显症状,即使发现阴茎根部开口也不及时治疗,直至反复局部排脓才就诊。一定程度上导致了报道病例较少。文献中报道的病例就有因性病感染<sup>[3]</sup>、阴蒂肥大<sup>[4]</sup>而就诊的病例。本科接受的病例中也有因阴茎上翘、包皮过长就诊偶然发现的病例。

CPS 临床表现为耻骨前窦道或瘻管。所有男性患者均存在阴茎根部开口,女性可于阴蒂处开口。大部分患者有窦口渗出,表现为黄白色脓性分泌物;在排尿时有水样物排出或者黏液水样排泄物排出;部分患者表现为瘻口周围红斑,尿路感染少见。本研究中 9 例男性患者瘻口均位于阴茎根部偏上方或阴茎背侧,腹壁中线处,距离 5 cm 以内,其中有 6 例有黄白色分泌物排出。2 例合并有阴茎背曲,无尿失禁;1 例有瘻口周围皮肤炎症改变。

完整手术切除可取得满意疗效,但 CPS 窦道通常较细长,文献报道窦道末端多终止于膀胱前壁,较长者可终止于脐部<sup>[5]</sup>,部分与后尿道特别是前列腺部尿道相连。有报道建议术前给予造影检查明确窦道走行,终末端位置,同时行膀胱造影可观察窦道与膀胱尿道关系<sup>[6-7]</sup>。但也有文献认为造影检查并不能完全显示窦道末端,仍需结合 MRI 明确<sup>[6]</sup>。本文中部分瘻管长度较短,造影时置管相对困难。故本组均于术中给予美兰窦道内注射直观的显示出窦道的走行,充分显露出窦道边缘,避免术中切断破溃。同时可观察窦道是否与膀胱尿道相连,若按压耻骨上膀胱区可及尿液蓝染,可证实窦道与膀胱或尿道相连,本组中无 1 例术中美兰自尿道排出。手术中需注意保护阴茎背侧血管神经束,避免损伤。术中需注意窦道残端的处理,本研究中所有患者窦道末端均呈现闭合性管道,美兰往往仅显示窦道远端部分,近端逐渐变细,其中 6 例位于耻骨下,3 例位于耻骨上。未

表 1 文献报道的先天性耻骨上窦道病例统计

编号	年份	作者	国家	男	女	总计	终点	病理	原因
1	1987	Campbell	澳大利亚	1	2	3	膀胱前壁	近端移行远端鳞状 2 例,复层鳞状 1 例	重复尿道
2	1990	Rrozanski	美国	0	1	1	膀胱前壁	复层鳞状	腹壁缺陷
3	1992	Lawson	英国	1	2	3	膀胱前壁	男性移行,女性 1 例移行 1 例假复层上皮	脐尿管遗迹变异
4	1993	Park	韩国	0	1	1	脐部	复层鳞状	重复尿道
5	1993	Gonzalez	西班牙	1	0	1	膀胱前壁	复层鳞状	重复尿道
6	1993	Groff	美国	0	2	2	脐下方	近端移行远端鳞状	脐尿管遗迹变异
7	1994	Daher	法国	0	1	1	膀胱前壁	复层鳞状	重复尿道
8	1995	Chou	台湾	0	1	1	耻骨后	复层鳞状,柱状上皮,移行上皮	泄殖腔的残留
9	1996	Aramburu	西班牙	1	0	1	膀胱前壁	近端移行远端鳞状	重复尿道
10	1996	Walther	美国	0	1	1	耻骨后	近端移行远端鳞状	重复尿道
11	1997	Green	英国	0	1	1	尿道	复层鳞状	重复尿道
12	1998	Ergün	土耳其	3	0	3	膀胱前壁	复层鳞状	重复尿道
13	1999	Nirasawa	日本	1	0	1	脐部	近端移行远端鳞状	脐尿管遗迹变异
14	2001	Huang	台湾	3	2	5	*	4 例近端移行远端鳞状,1 例鳞状	重复尿道
15	2002	Soares	葡萄牙	2	0	2	膀胱前壁尿道	复层鳞状	先天性瘻管
16	2002	Chao	台湾	1	0	1	耻骨前	复层鳞状,柱状上皮,移行上皮	尿生殖窦畸形
17	2003	Jouini	突尼斯	1	0	1	膀胱前壁	移行上皮	重复尿道
18	2003	Kais	伊拉克	1	0	1	膀胱前壁	近端移行远端鳞状	重复尿道
19	2003	Balster	德国	1	0	1	尿道前壁	近端移行远端鳞状	重复尿道
20	2004	Tsukamoto	日本	1	1	2	脐部	近端移行远端鳞状	泄殖腔的残留
21	2004	张 婷	中国	1	0	1	耻骨后	近端移行远端鳞状	重复尿道
22	2005	马燕飞	中国	1	0	1	#	#	#
23	2005	Usami	日本	1	0	1	耻骨前	复层鳞状	重复尿道
24	2006	Hayase	日本	0	1	1	耻骨后	复层鳞状	*
25	2008	Filippin	西班牙	1	0	1	膀胱前壁	移行上皮	脐尿管遗迹变异
26	2010	Dhabalia	印度	1	0	1	#	#	#
27	2010	Yasunari	日本	1	0	1	膀胱前壁	复层鳞状,柱状上皮,移行上皮	重复尿道
28	2011	Ozdemir	土耳其	1	0	1	耻骨联合	复层鳞状	重复尿道

\*:文献中无明确阐述;#:未给予手术治疗,故不明确。

及明显穿过耻骨联合者。术中给予残端结扎并缝扎,切除远端。术后随访无窦道复发,局部无明显反复红肿破溃,无尿频、尿急、尿痛、排尿困难等症状。

CPS 的病因尚不明确,目前大多数的理论支持阴茎背侧的尿道重复畸形。在已报道的病例中多见窦道或者瘘管与膀胱尿道相连,组织学检查可发现窦道腔内发现移行上皮的存在。Huang 等<sup>[8]</sup>报道的 5 例患者免疫组化证实 4 例近端为移行上皮,远端为鳞状上皮,1 例女性患者仅看到鳞状上皮。本文中有 2 例可见移行上皮伴有平滑肌细胞。5 例患者病理提示鳞状细胞。可及管周平滑肌细胞者 4 例,较多淋巴细胞者 3 例。也提示 CPS 可能与泌尿系统先天性发育异常相关。由于组织学提示 CPS 近端为移行细胞而远端为鳞状细胞,而且术中发现窦道与耻骨联合有一定距离,有部分作者认为窦道是脐尿管变异的一种形式<sup>[9-10]</sup>。另有观点认为 CPS 可能与泄殖腔残留遗迹<sup>[5]</sup>、腹壁融合缺陷<sup>[11]</sup>有关,或仅仅为单纯的阴茎瘘管或者窦道<sup>[12]</sup>。

综上所述,CPS 是一种罕见的先天性发育异常,表现为耻骨前区深部窦道,窦道近端可能与膀胱及尿道相连。其病因学尚不明确,需进一步研究证实。手术切除可取得满意效果。

#### [参考文献]

- [1] Campbell J, Beasley S, McMullin N, et al. Congenital prepubic sinus; possible variant of dorsal urethral duplication (Stephens Type2)[J]. J Urol, 1987, 137(3): 505-506
- [2] 张 婷, 周 云, 严向明. 先天性耻骨前窦道 1 例报道[J]. 临床小儿外科杂志, 2004, 3(2): 156
- [3] 马燕飞, 柴银柱. 阴茎背侧根部先天性窦道淋球菌感染一例[J]. 内蒙古医学杂志, 2005, 37(2): 127
- [4] Hayase M, Kojima Y, Hayashi Y, et al. Pseudo-clitoromegaly associated with congenital prepubic sinus[J]. Int J Urol, 2006, 13(7): 1031-1032
- [5] Tsukamoto K, Yamataka A, Kuga T, et al. Congenital prepubic sinus; is it a residual cloacal membrane and umbilicophallic groove? [J]. J Pediatr Surg Int, 2004, 20(1): 47-50
- [6] Sasaki Y, Deguchi E, Tsukada S, et al. Usefulness of magnetic resonance imaging for congenital prepubic fistula[J]. J Pediatr Surg, 2010, 45(8): 1734-1736
- [7] Özdemir E, Yildiz T, Kanbay M, et al. A case of congenital prepubic sinus[J]. Eur J Pediatr Surg, 2011, 21(6): 408-409
- [8] Huang CC, Wu WH, Chai CY, et al. Congenital prepubic sinus; a variant of dorsal urethral duplication suggested by immunohistochemical analysis[J]. J Urol, 2001, 166(5): 1876-1879
- [9] Nirasawa Y, Ito Y, Tanaka H, et al. Urachal cyst associated with a suprapubic sinus[J]. Pediatr Surg Int, 1999, 15(3-4): 275-276
- [10] Filippin SP, Rodríguez OF, Tosoni LM, et al. Congenital prepubic sinus; case report[J]. Actas Urol Esp, 2008, 32(3): 351-356
- [11] Rozanski TA, Kiesling VJ, Tank ES, et al. Congenital prepubic sinus[J]. J Pediatr Surg, 1990, 25(12): 1301
- [12] Soares-Oliveira M, Julia V, Garcia Aparicio L, et al. Congenital prepubic sinus[J]. J Pediatr Surg, 2002, 37(8): 1225-1227

[收稿日期] 2012-10-11