

· 短篇及病例报道 · doi:10.3969/j.issn.1671-8348.2019.16.047

网络首发 http://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1097.R.20190428.1003.010.html(2019-04-29)

以嵌顿疝为首发表现的早产儿 Amyand 疝 1 例并文献复习

米弘璜, 顾美群, 徐凡晴, 黎 阳, 朱鸿玲

(云南省第一人民医院儿科, 昆明 650032)

[中图法分类号] R656.2

[文献标识码] C

[文章编号] 1671-8348(2019)16-2879-02

Amyand 疝是儿童少见病, 早产儿腹股沟疝内阑尾炎更加少见, 目前无统一诊疗指南, 如诊断延迟, 发生穿孔, 病死率较高^[1]。现将本院新生儿科收治的 1 例以嵌顿疝为首发表现的早产儿 Amyand 疝报道如下。

1 临床资料

患儿, 男, 因“早产窒息复苏后 29 min”于 2016 年 8 月 25 日转入本科室。母亲孕 2 次、产 2 次(G₂P₂), 本次孕 31 周, 剖宫产娩出本患儿, 初生体质量 1.4 kg, Apgar's 评分 1-1-2 分, 羊水、胎盘、脐带无特殊, 母亲患慢性高血压合并子痫前期。入院后给予保暖、气管插管接呼吸机辅助呼吸(A/C 模式)、猪肺磷脂 0.12 g 气管内注入, 静脉营养支持、抗菌药物抗感染对症治疗, 病情平稳。2016 年 9 月 26 日(生后 31 d, 矫正胎龄 35⁺³ 周)出现吐奶、腹胀(质软)、阵发性哭闹、右侧腹股沟及阴囊出现约 2 cm×2 cm 包块, 给予水合氯醛灌肠镇静后, 包块能回纳。2016 年 9 月 27 日再次出现腹股沟区包块, 不能回纳, 皮肤稍发红, 肢端暖, 肌张力正常, 原始反射正常引出, 患儿哭闹不能安抚。查体: 体温(T)37.9 °C, 脉搏(P)152 次/min, 呼吸频率(R)44 次/min, Wt 1.82 kg, 早产儿貌, 反应尚可, 前囟平软, 双肺呼吸音清, 未闻及干湿啰音, 心律齐, 心音有力, 未闻及杂音, 腹胀明显, 最大腹围 33.5 cm, 平脐腹围 31.0 cm, 肠鸣音 2 次/min, 降钙素原 83.99 ng/mL。立即请外科会诊, 考虑右侧腹股沟疝伴嵌顿可能, 立即行外科手术治疗。

术中见疝囊内为阑尾, 长约 12 cm, 直径约 0.5 cm, 其远端长约 3.0 cm 呈坏死发黑, 疝囊内有脓液量约 5 mL, 诊断“右侧腹股沟嵌顿斜疝合并阑尾坏疽”。行松解疝环口, 切除坏疽阑尾(图 1), 将阑尾残端包埋入回盲部, 近端阑尾系膜双重结扎, 分离疝囊壁, 呈炎性水肿, 质地较脆易破。关闭腹横筋膜缺损容一指尖精索通过, 探查疝囊远端及睾丸鞘膜腔, 有少许脓苔将其取出。用聚维酮碘冲洗术野, 再于鞘膜腔内放置一负压引流管, 经切口外侧另戳孔引出。术后予以抗感染、伤口换药等处理, 于 2016 年 10 月 9 日拆除切口缝线, 伤口愈合好, 术后 13 d 出院。术后病理报告: 腹股沟疝内急性坏疽阑尾炎。诊断: (1) 右侧腹股沟嵌顿疝松解术; (2) 阑尾切除术; (3) 疝囊高位结扎;

(4) 右侧腹股沟管引流术。患儿随访至 1 岁, 生长发育正常。



图 1 坏疽的阑尾

2 讨论

Amyand 疝是腹股沟疝伴有正常的或是发炎的阑尾在疝囊中, 临床可表现为嵌顿疝相关的症状及脓毒症的全身症状。该病由 Claudius AMYAND 于 1735 年对 1 例 11 岁男孩进行了成功的阑尾切除术并在疝囊中发现了阑尾而首次报道。Amyand 疝伴急性阑尾炎在儿童中很少见, 属儿童罕见病, 尚无统一的诊疗指南, 如诊断延迟, 发生穿孔时, 有较高病死率^[1]。早产儿腹股沟疝内阑尾炎十分罕见, 大多数早产儿发生的腹股沟疝不易出现嵌顿^[2], 但其解剖学特征可能使早产儿阑尾易嵌顿^[3]。新生儿一旦发生腹股沟疝, 由于阴囊进行性肿胀和炎症进展, 睾丸扭转和嵌顿腹股沟疝较易发生, 应警惕 Amyand 疝的可能性^[4]。

LOSANOFF 等^[5]对 4 种类型的 Amyand 疝进行了分类, 并提出了不同的手术建议。分类如下, 1 型: 腹股沟疝内正常阑尾; 2 型: 腹股沟疝内急性阑尾炎, 其中脓毒性改变局限于疝囊; 3 型: 阑尾炎并发腹壁或腹膜炎; 4 型: 附睾伴腹部病变^[5], 本文所报道的病例特点符合 2 型表现。

近 10 年的病例报道见表 1, 从病例报道的术前诊断中可以看出, 男性患儿多于女性患儿, 8 例(50.0%) 患儿阑尾穿孔, 至少 5 例(31.2%) 有阴囊脓肿形成, 2 例(12.5%) 出现腹膜炎。手术前无医生对该病作出明确的诊断, 常被误诊为睾丸扭转^[13]、软组织感染^[15]、睾丸-附睾炎^[16], 因此须与睾丸扭转、睾丸-附睾炎、腹股沟淋巴结炎鉴别。病例中在没有肠梗阻的情

表 1 文献中仅报道了少数患有急性阑尾炎的婴儿 Amyand 疝

作者	年份	性别	足月/早产	年龄	术前持续时间	术前诊断	阴囊脓肿/腹膜炎	严重阑尾炎
ERGINEL 等 ^[6]	2017	男	足月	24 d	2 d	腹股沟嵌顿疝,疑似睾丸扭转	阴囊脓肿	阑尾穿孔
FASCETTI-LEON 等 ^[7]	2017	男	足月	29 d	—	右腹股沟包块	腹膜炎	阑尾炎症及坏死
SHEN 等 ^[8]	2015	女	—	6 个月	14 h	右腹股沟包块	否	发炎
SHEN 等 ^[8]	2015	男	早产	15 d	3 h	右腹股沟疝	阴囊远端少许脓液	发炎
ERGAZ 等 ^[9]	2014	男	早产	30 d	—	嵌顿性腹股沟疝	否	发炎
PIEDADE 等 ^[10]	2013	男	足月	6 周	15 d	绞窄性腹股沟疝阴囊脓肿伴肠穿孔	阴囊脓肿	坏疽伴穿孔
ERGAZ 等 ^[11]	2014	男	早产	30 d	—	绞窄性腹股沟疝	否	穿孔
JAIN 等 ^[12]	2012	男	足月	1 岁	9 个月	慢性阴囊炎	慢性阴囊炎	穿孔
KHAN 等 ^[13]	2011	男	足月	10 个月	10 h	左侧睾丸扭	是	发炎
欧阳昱等 ^[14]	2011	男	—	25 d	2 d	右侧嵌顿性腹股沟斜疝、右侧附睾-睾丸炎	阴囊脓肿	坏疽伴穿孔
欧阳昱等 ^[14]	2011	男	早产	27 d	15 h	右侧嵌顿性腹股沟斜疝	阴囊脓肿	坏疽伴穿孔
REHMAN 等 ^[15]	2010	男	足月	8 周	4 d	Swelling after reduction	否	坏疽
PARK 等 ^[16]	2010	男	早产	33 d	13 d	右侧附睾-睾丸炎	阴囊脓肿	发炎
NGOM 等 ^[17]	2014	男	足月	14 d	18 h	绞窄性腹股沟疝	否	穿孔
LIVADITI 等 ^[18]	2007	男	早产	35 d	1 d	绞窄性腹股沟疝	局部腹膜炎	穿孔
LIVADITI 等 ^[18]	2007	男	早产	32 d	—	绞窄性腹股沟疝	否	发炎

—:无数据

况下,术前诊断没有特异性,手术探查的决定也是困难的,超声检查有时表现出管状结构延伸至腹股沟管并与带有充气的盲肠连通,可以诊断该病,然而该表现并不容易看到^[16]。

本病例中,因患儿腹股沟区包块手法复位后包块不能回纳,故采取了早期手术探查,术中发现阑尾已出现坏疽,但未穿孔。因此,对于该病的处理策略,作者建议:(1)加强对罕见疾病的学习,提高认识;(2)早产儿腹股沟疝、阴囊肿块的鉴别诊断中应考虑 Amyand 疝可能,对疑似病例需尽早行手术探查;(3)早产儿发生腹股嵌顿沟疝时,需考虑阑尾炎的可能,需早期进行手术探查,以降低该病导致的并发症及死亡的风险。

参考文献

- [1] SCHWARTZ K L, GILAD E, SIGALET D, et al. Neonatal acute appendicitis: a proposed algorithm for timely diagnosis[J]. J Pediatr Surg, 2011, 46(11): 2060-2064.
- [2] LEE S L, GLEASON J M, SYDORAK R M. A critical review of premature infants with inguinal hernias: optimal timing of repair, incarceration risk, and postoperative apnea[J]. J Pediatr Surg, 2011, 46(1): 217-220.
- [3] ERGAZ Z, SIMANOVSKY N, VROMEN A, et al. Amyand's hernia with perforated appendicitis in a premature infant [J]. Eur J Pediatr, 2014, 173(4): 541-543.
- [4] BHIDE S S. Amyand's hernia[J]. Indian J Pediatr, 76(8): 854-855.
- [5] LOSANOFF J E, BASSON M D. Amyand hernia: a classification to improve management[J]. Hernia, 2008, 12(3): 325-326.
- [6] ERGINEL B, SOYSAL F G, CELIK A, et al. Neonatal perforated appendicitis in incarcerated inguinal hernia in the differential diagnosis of testis torsion[J]. Pediatr Int, 2017, 59(7): 831-832.
- [7] FASCETTI-LEON F, SHERWOOD W. Neonatal appendicitis and incarcerated inguinal hernia: case report and review of the literature[J]. J Indian Assoc Pediatr Surg, 2017(22): 248-250.
- [8] SHEN Z, ZHENG S. Timely recognition of Amyand's hernia with appendicitis in infants[J]. World J Pediatr, 2015, 11(4): 392-394.
- [9] ERGAZ Z, SIMANOVSKY N, VROMEN A, et al. Amyand's hernia with perforated appendicitis in a premature infant[J]. Eur J Pediatr, 2014, 173(4): 541-543.
- [10] PIEDADE C, REIS ALVES J. Amyand's hernia in a 6-week-old infant: a delayed diagnosis[J]. Case Rep Pediatr, 2013, 2013: 758171.
- [11] ERGAZ Z, SIMANOVSKY N, VROMEN A, et al. Amyand's hernia with perforated appendicitis in a premature infant [J]. Eur J Pediatr, 2014, 173(4): 541-543.
- [12] JAIN P, MISHRA A. Amyand's hernia presenting as chronic scrotal sinus[J]. J Indian Assoc Pediatr Surg, 2012, 17(3): 128-129.
- [13] KHAN R A, WAHAB S, GHANI I. Left-sided strangulated Amyand's hernia presenting as testicular torsion in an infant[J]. Hernia, 2011, 15(1): 83-84.
- [14] 欧阳昱, 廖凤文, 梁彪, 等. 新生儿阑尾炎并嵌顿疝 2 例 [J]. 临床小儿外科杂志, 2011, 10(1): 79.
- [15] REHMAN M R, PANTELI C, TSANG T. Laparoscopic repair of Amyand's hernia in an 8-week-old infant [J]. Hernia, 2010, 14(4): 443-445.
- [16] PARK J, HEMANI M, MILLA S S, et al. Incarcerated amyand's hernia in a premature infant associated with circumcision: a case report and literature review[J]. Hernia, 2010, 14(6): 639-642.
- [17] NGOM G, AMADOU I, IBRAHIMA K A, et al. Amyand's hernia with perforated appendix in a neonate[J]. BMJ Case Rep, 2014, 5(3): bcr0320102847.
- [18] LIVADITI E, MAVRIDIS G, CHRISTOPOULOS-GEROULANOS G. Amyand's hernia in premature neonates: report of two cases[J]. Hernia, 2007, 11(6): 547-549.

(收稿日期: 2019-03-03 修回日期: 2019-04-05)