

## 论著·临床研究

doi:10.3969/j.issn.1671-8348.2021.23.020

网络首发 [https://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1097.R.20210730.1352.006.html\(2021-07-30\)](https://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1097.R.20210730.1352.006.html(2021-07-30))

## 女性膀胱侵袭性血管黏液瘤 1 例报道并文献复习\*

陈天明<sup>1,2</sup>,王德林<sup>1△</sup>,罗生军<sup>1</sup>,陈刚<sup>1</sup>,吴小侯<sup>1</sup>

(1. 重庆医科大学附属第一医院泌尿外科 400016; 2. 重庆市江津区中心医院泌尿外科 402260)

**[摘要]** **目的** 探讨膀胱侵袭性血管黏液瘤(AAM)的临床特点、诊断及治疗。**方法** 收集并分析包括本文确诊 1 例在内的 14 例膀胱 AAM 的临床表现、治疗结果及预后等情况。**结果** 14 例膀胱 AAM 患者中,男 5 例,女 9 例;年龄 11~67 岁,平均 37.21 岁;14 例患者中 5 例出现尿频,4 例出现尿急,2 例出现尿痛,4 例出现血尿,3 例出现排尿困难,2 例出现下腹包块,1 例出现外阴肿块;治疗主要为肿瘤切除及膀胱部分切除术;4 例患者随访不详,10 例患者随访 5 个月至 9 年无复发。本例患者行机器人辅助下腹腔镜膀胱部分切除及右输尿管膀胱再植术,手术时间 260 min,出血量 300 mL;术后引流第 1、2、3 天分别为 110、40、10 mL;第 4 天拔出腹腔引流管;无漏尿、感染等并发症。病理诊断为膀胱 AAM,免疫组织化学(IHC)检测显示,雌激素受体(ER)、孕激素受体(PR)、结蛋白(Des)、树突状细胞(CD)34、视网膜母细胞瘤基因 1(RB1)、凝血因子 XⅢ(FXⅢ)为阳性,平滑肌肌动蛋白(SMA)、钙调节蛋白(Calponin)、细胞角蛋白(CK)、间变性淋巴瘤激酶(ALK)、肌浆蛋白(Myogenin)、钙结合蛋白 S100、CK5/6、抑癌基因 P63、gata 结合蛋白 3(GATA3)、配对盒基因 8(PAX8)、β-连环蛋白(β-catenin)、E26 转录因子(ETS)相关基因(ERG)、黏蛋白 4(MUC-4)均为阴性。**结论** 膀胱 AAM 是一种罕见、有局部侵袭特性的良性肿瘤,依赖组织病理及 IHC 确诊,机器人辅助腹腔镜膀胱部分切除术治疗巨大膀胱 AAM 安全有效。

**[关键词]** 膀胱;侵袭性血管黏液瘤;机器人辅助;腹腔镜;膀胱部分切除术;输尿管再植术**[中图分类号]** R737.14 **[文献标识码]** A **[文章编号]** 1671-8348(2021)23-4053-05

## Female bladder aggressive angiomyxoma: report of 1 case and review of literatures\*

CHEN Tianming<sup>1,2</sup>, WANG Delin<sup>1△</sup>, LUO Shengjun<sup>1</sup>, CHEN Gang<sup>1</sup>, WU Xiaohou<sup>1</sup>

(1. Department of Urological Surgery, First Affiliated Hospital of Chongqing Medical University, Chongqing 400016, China; 2. Department of Urological Surgery, Jiangjin District Central Hospital, Chongqing 402260, China)

**[Abstract]** **Objective** To investigate the clinical features, diagnosis and treatment of female bladder aggressive angiomyxoma(AAM). **Methods** The clinical manifestations, treatment results and prognosis in collected 14 cases of AAM (including 1 definite case in this paper) were collected and analyzed. **Results** Among 14 cases of AAM, there were 5 males and 9 females; age was 11—67 years old with an average of 37.21 years old; among 14 cases, frequency of urination was in 4 cases, dysuria was in 2 cases, hematuria was in 4 cases, dysuresia was in 3 cases, lower abdomen appeared mass in 2 cases and vulva mass appeared in 1 case; the treatment was mainly the tumor excision and partial cystectomy; the follow-up was unknown in 4 cases and 10 cases were followed up for 5 months to 9 years without recurrence. The case in this paper conducted robot-assisted laparoscopic partial cystectomy and replantation of right ureter and bladder, the operation time was 260 min, the blood loss volume was 300 mL, postoperative drainage volume was 110 mL on 1 d, 40 mL on 2 d and 10 mL on 3 d; the abdominal drainage tube was pulled out on 4 d; there were no complications such as leakage of urine and infection. The pathological diagnosis was AAM of the bladder. The immunohistochemistry (IHC) results showed: estrogen receptor (ER), progesterone receptor (PR), Desmin (Des), dendritic cells (CD)34, Retinoblastoma 1 (RB-1) and coagulation factor XⅢ (FXⅢ) were positive, smooth muscle actin (SMA), Calponin, cytokeratin (CK), anaplastic lymphoma kinase (ALK), Myogenin, Calcium binding protein S100, CK5/6,

\* 基金项目:重庆市社会事业与民生保障科技创新专项基金项目(cstc2016shms-ztx0054, cstc2017shms-zdyf0319);重庆市科技攻关基金项目(cstc2012gg-yyjs0454)。 作者简介:陈天明(1980—),副主任医师,硕士,主要从事腹腔镜及腔道泌尿外科方面的研究。 △ 通信作者, E-mail:dlwangws@163.com。

Tumor suppressor gene P63, Gata binding protein 3 (GATA3), paired-box 8 (PAX8),  $\beta$ -catenin, E26 transformation-specific (ETS) related gene (ERG) and mucin 4 (MUC-4) were negative. **Conclusion** Bladder AAM is a rare benign tumor with local invasion, its definite diagnosis depends on histopathology and IHC. The robot-assisted laparoscopic partial cystectomy is safe and effective for the treatment of giant AAM of the bladder.

**[Key words]** bladder; aggressive angiomyxoma; robot-assisted; laparoscopic; partial cystectomy; uretero-neocystostomy

侵袭性血管黏液瘤(AAM)是一种罕见的软组织肿瘤,1983年由 STEEPER 等<sup>[1]</sup>首次报道。WHO (2002)软组织和骨肿瘤分类将其归为分化不确定的肿瘤。AAM好发于盆腔壁和会阴部软组织,发生于膀胱者罕见,其生物学行为独特。本文报道1例膀胱AAM,结合文献复习,对其临床特点及治疗进行探讨。

## 1 资料与方法

### 1.1 一般资料

选择2020年3月14日入住重庆医科大学附属第一医院泌尿外科的1例膀胱AAM患者,收集其住院期间的临床资料、实验室检测结果。

### 1.2 方法

以“侵袭性血管黏液瘤”“膀胱”“女性”“bladder”“aggressiveangiomyxoma”为关键词在中国知网、万方、维普及 Pubmed 等数据库中检索1980—2020年已发表的文献。纳入标准:明确诊断的膀胱AAM。排除标准:(1)诊断依据不足;(2)病例资料欠缺过多;(3)无法获取全文。根据纳入、排除标准,共获取文献51篇,收集相关病例13例,发表时间为1983—2019年。采用病例资料回顾性分析方法,总结并分析文献已报道的13例及本文确诊的1例膀胱AAM患者的临床表现及治疗过程、预后等资料。随访时间5个月至9年。

## 2 结果

### 2.1 本例患者诊治相关情况

患者,女,52岁,已婚,因“尿频、尿急1个月,发现下腹部包块1d”于2020年3月14日入住重庆医科大学附属第一医院泌尿外科。患者1个月前无明显诱因出现尿频、尿急,主要表现为排尿次数增多,每小时1次,每次尿量较少,白天、夜间无明显区别。无明显肉眼血尿,无发热,无午后潮热、盗汗等不适,无腰痛,无腹胀、腹痛,未行特殊处理。1d前无意间自己扪及下腹部包块,尿频、尿急无明显好转遂来本院就诊,行B超检查提示:膀胱巨大占位,大小约10cm×11cm。CT检查提示:膀胱腔内巨大肿块影,考虑膀胱癌可能性大,双侧肾盂输尿管明显扩张积水。CT血管造影(CTA)检查提示:双侧肾动脉未见明显异常。CT尿路造影(CTU)检查提示:双侧肾盂、肾盏及输尿管明显扩张,右侧部分肾盂、肾盏及输尿管未见造影剂充填,膀胱内巨大肿块与后壁相连,临近右侧输尿管入口处狭窄,造影剂部分填充(图1)。既往史无特殊,无类似疾病家族史。查体:双肾区无明显叩击痛,双侧

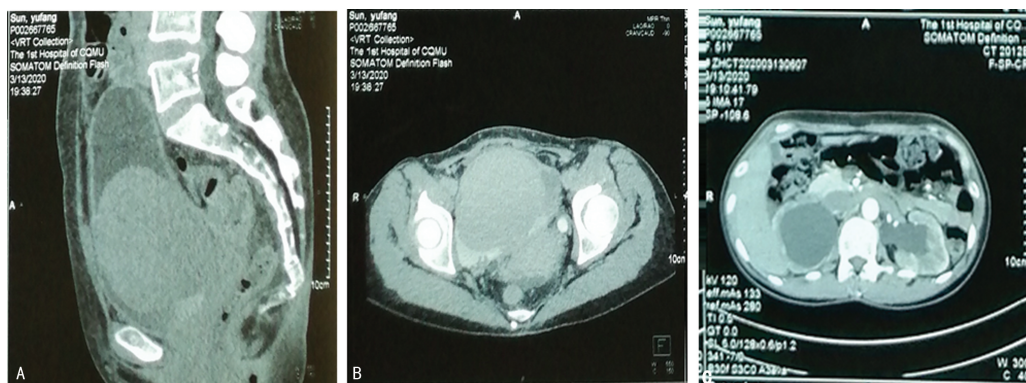
输尿管走行区无压痛,耻骨上膀胱区稍隆起,可扪及一包块,无压痛。实验室检查:血红蛋白(Hb)81g/L,肌酐237 $\mu$ mol/L,尿素氮7.1mmol/L,清蛋白(Alb)32g/L,其余正常。

患者于2020年3月19日在局部麻醉下行膀胱镜检查,因肿瘤大,膀胱出血视野差,患者耐受差,未取到活检。2020年3月24日在全身麻醉下拟行机器人辅助腹腔镜全膀胱切除术+回肠代膀胱皮肤造瘘术,术中行经尿道电切冰冻活检术,见膀胱内巨大肿瘤呈球状,表面光滑无绒毛,基底直径约2cm,周围血管迂曲扩张,左侧输尿管口清晰,稍受压,未见右侧输尿管口。取基底组织2块送病理,冰冻病理检查提示:组织形态异常,不能够区分良恶性,建议大标本组织活检送免疫组织化学(IHC)检测。与家属充分沟通后,仅行经尿道膀胱肿瘤诊断性电切活检术。活检术后病理提示:(膀胱)送检组织为致密纤维组织夹杂平滑肌组织及个别血管,请结合临床。IHC检测显示:平滑肌肌动蛋白(SMA)、Ki67<1%、波形蛋白(Vim)、树突状细胞(CD)34阳性及结蛋白(Des)部分阳性,钙结合蛋白S100、转录因子Sox-10、细胞角蛋白(CK)、上皮膜抗原(EMA)、Bcl-2、蛋白Dog-1、重组蛋白CD117均为阴性。于2020年3月31日在全身麻醉下行机器人辅助腹腔镜膀胱部分切除术+右侧输尿管膀胱再植术+右侧双J管置入术+膀胱造瘘术。术中见:膀胱极度充盈,以膀胱顶部为中心,纵行切开膀胱壁约10cm,清除膀胱内血凝块(膀胱镜检和电切镜取活检所致)约500mL,可见膀胱巨大肿块呈灰黄色,大小约10cm×11cm×10cm,带蒂,蒂宽约2cm,位于三角区靠右后壁,边界清楚,质中。左侧输尿管开口可见,稍受压,未见右侧输尿管开口,在距肿瘤外周约2cm处将膀胱黏膜、基底部膀胱部分肌肉连同肿瘤一并切除。标本剖开切面呈灰白鱼肉样。术后病理结果:膀胱病灶组织IHC检测结果,符合AAM。肿瘤周边组织送检为炭化的纤维结缔组织。术后病理及IHC标记,光镜下疏松的富于黏液的间质中,肿瘤细胞大小基本一致,星芒状、卵圆形或短梭形,细胞质少嗜酸性,核无异型性,核分裂象罕见,肿瘤内见许多管径粗细不等、壁厚薄不一的血管,血管周围可见炎性细胞浸润。IHC检测显示:雌激素受体(ER)、孕激素受体(PR)、结蛋白(Des)、树突状细胞(CD)34、视网膜母细胞瘤基因1(RB-1)、凝血因子XIII(FXIII)均为阳性,SMA、钙调节蛋白(Calponin)、CK、间变性淋巴瘤激酶(ALK)、肌浆蛋白(Myoge-

nin)、钙结合蛋白 S100、CK5/6、抑癌基因 P63、gata 结合蛋白 3(GATA3)、配对盒基因 8(PAX8)、β-连环蛋白 (β-catenin)、E26 转录因子 (ETS) 相关基因 (ERG)、黏蛋白 4 (MUC-4) 均为阴性。患者 CD34、PR 阳性表达及病理检测见图 2。术后给予抗炎、补液、加强营养等对症治疗, 康复出院, 密切随访 8 个月无复发, 患者恢复可, 双肾积水明显减轻, 排尿正常。

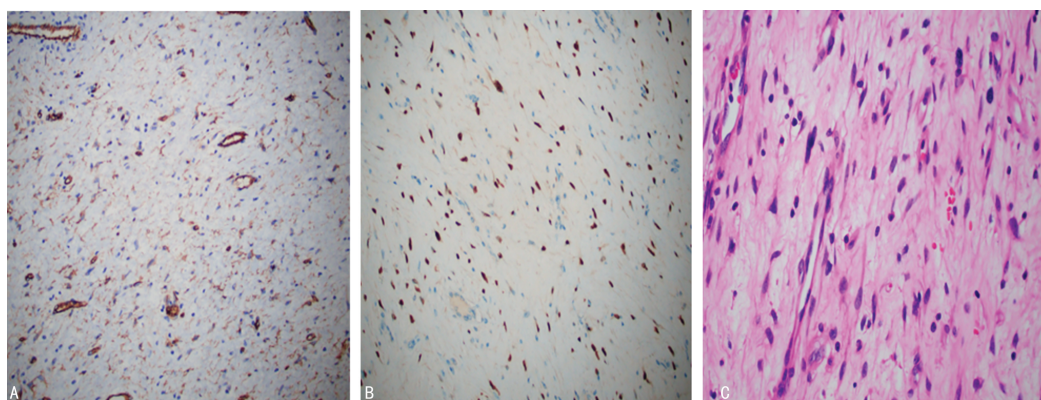
2.2 14 例膀胱 AAM 患者的临床特征及诊疗情况

14 例膀胱 AAM 患者中, 男 5 例, 女 9 例, 男女比例为 1.0 : 1.8; 年龄 11~67 岁, 平均 37.21 岁; 14 例患者中 5 例出现尿频, 4 例出现尿急, 2 例出现尿痛, 4 例出现血尿, 3 例出现排尿困难, 2 例出现下腹包块, 1 例出现外阴肿块; 治疗主要以肿瘤切除及膀胱部分切除术; 4 例患者随访不详, 10 例患者随访 5 个月至 9 年无复发。14 例患者临床特征及诊疗情况, 见表 1。



A:CT 矢状位膀胱影像; B:CT 横截面膀胱影像; C:CT 横截面肾脏影像。

图 1 患者术前影像学表现



A:CD34 表达(EliVision 法, ×100); B:PR 表达(EliVision 法, ×100); C:病理检测显示星芒状、短梭形的肿瘤细胞(HE 染色, ×200)。

图 2 患者 CD34、PR 阳性表达及病理检测

表 1 14 例膀胱 AAM 患者临床特征及诊疗情况

病例	报道年	性别	年龄 (岁)	部位	肿瘤大小 (cm)	临床症状	治疗	随访
1 <sup>[2]</sup>	1993	女	31	不详	不详	不详	不详	8 年无复发
2 <sup>[3]</sup>	1999	女	44	膀胱近左输尿管入口	2×2×2	进展性排尿困难, 偶发血尿	内镜下切除肿物	2 年无复发
3 <sup>[4]</sup>	2000	男	38	膀胱左侧壁	15×12×10	盆腔内无痛性肿物	局部切除术后 3 年复发, 行膀胱全切	全切术后 9 年无复发
4 <sup>[5]</sup>	2006	男	14	膀胱左下	15×13×12	尿频、尿急, 下腹包块	全膀胱切除+回肠原位膀胱术	1 年无复发
5 <sup>[6]</sup>	2008	女	30	膀胱顶部左侧	3×3×3	无痛性间断血尿	膀胱部分切除	6 个月无复发
6 <sup>[7]</sup>	2010	男	67	尿道内口前列腺部	2×2×2	夜尿增多, 双侧肾盂积, 尿滞留	经尿道肿物切除术	1.5 年无复发
7 <sup>[8]</sup>	2013	女	11	膀胱左侧壁	5×4×3	尿频、尿急、尿痛	内镜下切除肿物术后 5 月复发, 行单孔腹腔镜下膀胱部分切除术	5 个月无复发

续表 1 14 例膀胱 AAM 患者临床特征及诊疗情况

病例	报道年	性别	年龄(岁)	部位	肿瘤大小(cm)	临床症状	治疗	随访
8 <sup>[9]</sup>	2014	男	25	膀胱顶部近输尿管处	9×8×7	体检无意发现	切除 2/5 膀胱	1 年无复发
9 <sup>[10]</sup>	2014	女	45	膀胱右后壁	大(不详)	排尿和排便困难	膀胱部分切除术+右侧输尿管膀胱再植术	2 年无复发
10 <sup>[11]</sup>	2015	女	48	膀胱颈	17×14×7	尿频、尿急、尿痛伴血尿	膀胱部分切除术	不详
11 <sup>[12]</sup>	2017	女	49	会阴、外阴、尿道和膀胱	20×20×20	外阴肿块	根治性全膀胱切除术+全尿道切除+盆底重建	不详
12 <sup>[13]</sup>	2019	男	24	膀胱后壁	15×11×10	下腹部胀痛,血尿	不详	不详
13 <sup>[14]</sup>	2019	女	43	膀胱右侧壁	2×2×1	尿频,排尿困难	内镜下切除肿物	不详
14	本文	女	52	膀胱后壁偏右	11×10×10	尿频、尿急,下腹包块	机器人辅助腹腔镜膀胱部分切除术+右侧输尿管膀胱再植术	8 个月无复发

### 3 讨论

AAM 是一种临床罕见、生物学行为独特、具有局部侵袭特性的良性肿瘤,以无痛性缓慢生长、局部浸润性生长、较高的局部复发率及无远处转移为特点。1983 年 STEEPER 等<sup>[1]</sup>报道第 1 例 AAM。本病多发生于成年女性外阴、会阴、盆腔及腹股沟区。患者发病年龄为 1~82 岁,多发生于 30~40 岁。据 2017 年研究报告 AAM 约 350 例,复发率高,其中局部复发率为 32%~76%<sup>[15]</sup>;误诊率约 80%<sup>[16]</sup>。目前 AAM 的发病机制不明,可能与 12 号染色体 t(5;8)(p15;q22)易位有关<sup>[17]</sup>。AAM 多呈缓慢、隐匿性生长,临床缺乏特异性,术前诊断较困难,甚至 70% AAM 患者病变已浸润膀胱、直肠及盆底结构,但仍无明显症状<sup>[15]</sup>。临床上 AAM 常被误诊为巴氏腺囊肿、脂肪瘤、股疝、外阴肿物及阴道脱垂<sup>[18]</sup>,其中以前庭大腺腺囊肿及脂肪瘤最为多见。目前 AAM 术前诊断主要依据影像学:B 超显示为囊实性肿块;CT 或磁共振成像(MRI)可有“旋涡状”及“分层”特异性征象<sup>[19]</sup>。术后病理检查或 IHC 检查是当前 AAM 诊断的金标准,肿瘤切面一般呈灰黄色,质软,呈凝胶状,无坏死及囊性变。组织学上,肿瘤表现为纺锤体样或星状细胞增殖,由疏松的纤维黏液样基质分割,其间散在有大小不等的血管,部分血管过度增生或管壁玻璃样变,IHC 检测显示:ER、PR、Des、CD34、FXⅢ为阳性,Calponin、CK、Myogenin、S100、CK5/6、 $\beta$ -catenin、ERG、MUC-4 为阴性<sup>[20]</sup>。

AAM 是具有局部侵袭性、复发性及误诊率较高的罕见间叶性良性肿瘤,发生在膀胱的报道很少,本文通过 Medline 检索出 13 例膀胱 AAM,多为个案报道,国外文献 8 例,国内文献仅见 5 例。结合本文报道,膀胱 AAM 多发于中青年女性,男女比例 1.0:1.8,仅 1 例为儿童。发生于膀胱的后侧壁多见,多无

明显临床症状,随着肿瘤的增大,主要表现为尿频、尿急等肿瘤压迫所致的尿路刺激症状,偶发下腹部包块来医院就诊,其确诊主要依赖影像学及病理检查,目前尚无统一的治疗方案。临床治疗上采用综合治疗,以手术治疗为主,复发率低<sup>[2-14]</sup>。肿物的完整切除是 AAM 手术治疗的原则。AAM 手术效果的差异可能与肿物的大小及位置深浅有关,局部体积小的肿物基本可以达到切缘阴性,但范围大、位置深且累及重要邻近器官的肿物很难做到完全切除<sup>[21]</sup>。AAM 好发于育龄期女性,肿物可随着妊娠的增长而增大,ASHRAF 等<sup>[22]</sup>发现妊娠 16 周合并 AAM 的孕妇,孕期 1 个月内肿物可增大至 30 cm×26 cm;大多数肿物 IHC 显示,ER 和(或)PR 阳性;SCHWARTZ 等<sup>[23]</sup>研究报道,单纯激素治疗后肿物缩小甚至消失,膀胱 AAM 的生长可能与雌(孕)激素水平变化密切相关。腹腔镜手术具有对机体损伤小且术后恢复快等特点,因此,也成为 AAM 治疗的选择。OTA 等<sup>[24]</sup>成功进行了腹腔镜联合会阴完整切除外阴 AAM 的手术,且患者术后随访 9 个月 AAM 无复发。但目前文献尚未发现腹腔镜联合切除巨大膀胱 AAM 的报道。

综上所述,膀胱 AAM 是临床一种罕见的疾病,肿瘤呈侵袭性生长,临床特点不典型,误诊率较高,主要靠病理诊断,经尿道膀胱肿瘤电切术和膀胱部分切除术仍是目前膀胱 AAM 主要的治疗方法,激素治疗、血管栓塞、放疗及微创等也是膀胱 AAM 治疗的选择。目前巨大的膀胱 AAM 国内外报道多采用开放手术切除,微创治疗巨大膀胱 AAM 的报道极少,对于巨大的膀胱 AAM,本研究利用机器人辅助腹腔镜切除和组织重建取得了较好的效果,随着医疗技术及手术设备的进步,机器人辅助下的腹腔镜手术为诸多疑难罕见病的治疗提供了一个新的方向,机器人辅助腹腔镜膀胱部分切除术及输尿管再植术对于巨大

膀胱 AAM 的患者是一个不错的治疗选择。而长期随访和影像学检查对确定肿瘤复发非常重要。

## 参考文献

- [1] STEEPER T A, ROSAI J. Aggressive angio-myxoma of the female pelvis and perineum; report of nine cases of a distinctive type of gynecologic soft tissue neoplasm [J]. *Am J Surg Pathol*, 1983, 7(5):463-475.
- [2] LÓPEZ LÓPEZ C, ROMERO MAROTO J, QUÍLEZ FENOLL J M, et al. New location of aggressive angio-myxoma; the bladder [J]. *Actas Urol Esp*, 1993, 17(9):611-613.
- [3] CESARANI F, GARRETTI L, DENEGRI F, et al. Sonographic appearance of aggressive angio-myxoma of the bladder [J]. *J Clin Ultrasound*, 1999, 27(7):399-401.
- [4] MAY F, LUTHER A, MOHR W, et al. Recurrent aggressive angio-myxoma of the urinary bladder. Case report and review of the literature [J]. *Urol Int*, 2000, 65(1):57-59.
- [5] 刘家骥. 膀胱侵袭性血管黏液瘤 1 例 [J]. *第三军医大学学报*, 2006, 28(14):1516-1522.
- [6] 张磊. 膀胱侵袭性血管黏液瘤 1 例 [J]. *诊断学理论与实践*, 2008, 7(2):213.
- [7] SAWADA Y, ITO F, NAKAZAWA H, et al. A rare benign genitourinary tumor in a Japanese male; urinary retention owing to aggressive angio-myxoma of the prostate [J]. *Rare Tumors*, 2010, 2(1):e15.
- [8] 骆强翔, 刘春晓. 儿童膀胱侵袭性血管黏液瘤一例报告 [J]. *中华肿瘤防治杂志*, 2013, 20(19):1533-1534.
- [9] 陈艳昕, 窦富贤, 马亚琪, 等. 膀胱侵袭性血管黏液瘤 2 例临床病理观察 [J]. *诊断病理学杂志*, 2014, 21(5):270-273.
- [10] EROL B, PELIT E S, BEKTAS S, et al. Aggressive vaginal angio-myxoma mimicking a bladder mass [J]. *Urol J*, 2014, 11(3):1710-1713.
- [11] DAVARI M, LAMB B W, CHOWDHURY S, et al. Aggressive angio-myxoma of the bladder neck requiring local excision and mitrofanoff formation [J]. *Case Rep Urol*, 2015, 19(8):1-2.
- [12] SONG M, GLASGOW M, MURUGAN P, et al. Aggressive angio-myxoma of the vulva and bladder [J]. *Obst Gynecol*, 2017, 130(4):885-887.
- [13] 郭洋洋, 姜红涛, 李琰, 等. 膀胱侵袭性血管黏液瘤 1 例 [J]. *医学影像学杂志*, 2019, 29(5):797-802.
- [14] FILHO R C, CARVALHO A A, CARVALHO R A, et al. Endourolologic treatment for aggressive angio-myxoma of the bladder [J]. *J Endourol Case Rep*, 2019, 5(1):19-21.
- [15] SUN Y, ZHU L, CHANG X, et al. Clinicopathological features and treatment analysis of rare aggressive angio-myxoma of the female pelvis and perineum - a retrospective study [J]. *Pathol Oncol Res*, 2017, 23(1):131-137.
- [16] 郭瑞江, 齐跃, 刘水策, 等. 侵袭性血管黏液瘤的临床病理特点:附 16 例病例分析 [J]. *现代肿瘤医学*, 2014, 22(3):660-663.
- [17] 张素芹, 侯建青. 子宫阔韧带侵袭性血管黏液瘤一例及文献复习 [J]. *中国妇产科临床杂志*, 2013, 14(1):70-71.
- [18] SAMPAIO J, SARMENTO-GONCALVES I, RAMADA D, et al. Aggressive angio-myxoma in pregnancy; a rare condition, a common misdiagnosis [J]. *Case Rep Obstet Gynecol*, 2016, 2016(7):8539704.
- [19] SRINIVASAN S, KRISHNAN V, ALI S Z, et al. "Swirl sign" of aggressive angio-myxoma-a lesser known diagnostic sign [J]. *Clin Imaging*, 2014, 38(5):751-754.
- [20] BAI H M, YANG J X, HUANG H F, et al. Individualized managing strategies of aggressive angio-myxoma of female genital tract and pelvis [J]. *Eur J Surg Oncol*, 2013, 39(10):1101-1108.
- [21] SMITH H G, THWAY K, MESSIOU C, et al. Selective marginal resections in the management of aggressive angio-myxomas [J]. *J Surg Oncol*, 2016, 114(7):828-832.
- [22] ASHRAF T, HAROON S. Aggressive angio-myxoma in pregnancy [J]. *J Coll Physicians Surg Pak*, 2014, 24 Suppl 1:S24-26.
- [23] SCHWARTZ P E, HUI P, MCCARTHY S. Hormonal therapy for aggressive angio-myxoma; a case report and proposed management algorithm [J]. *J Low Genit Tract Dis*, 2014, 18(2):55-61.
- [24] OTA H, OTSUKI K, ICHIHARA M, et al. A case of aggressive angio-myxoma of the vulva [J]. *J Med Ultrason (2001)*, 2013, 40(3):283-287.