

儿童睾丸良性肿瘤 44 例报告

殷坤党^{1,2,3} 刘振华^{1,2} 李志勇^{1,2} 李向东^{1,2} 刘卓炜^{1,2} 秦自科^{1,2} 叶云林^{1,2}

[摘要] 目的:总结儿童睾丸良性肿瘤的临床资料,探讨其围手术期评估的特点,提高保留睾丸手术的可及性。方法:回顾性分析 2010 年 1 月—2023 年 6 月中山大学肿瘤防治中心收治的睾丸肿瘤患儿的临床资料,其中睾丸良性肿瘤 44 例。收集睾丸良性肿瘤患儿术前评估资料、术后病理结果及随访资料,统计分析其特点。结果:44 例患儿中左侧 17 例,右侧 25 例,双侧 2 例;年龄 3 个月~12 岁,中位年龄 8 岁,2 岁及以下 13 例。其中畸胎瘤 22 例,表皮样囊肿 18 例,腺瘤 2 例,间皮囊肿 2 例。所有患儿均常规行睾丸癌肿瘤标志物检测,其中 2 例血清甲胎蛋白(alpha fetoprotein, AFP)升高,超声检查考虑良性,均行根治性睾丸切除术;术前超声提示恶性肿瘤 4 例,肿瘤标志物均正常范围,其中 3 例行根治术,1 例行保留睾丸手术。共 23 例患儿行根治性睾丸切除术,21 例患儿行保留睾丸手术。术后随访 6~87 个月,中位随访时间 44 个月。所有受访患儿均未见肿瘤复发或者残留睾丸萎缩等并发症。**结论:**儿童睾丸肿瘤中良性肿瘤占有较高比例,应重视儿童睾丸肿瘤围手术期评估,避免过度治疗。

[关键词] 儿童; 睾丸肿瘤; 良性肿瘤; 保留睾丸手术; 围手术期评估

DOI: 10.13201/j.issn.1001-1420.2024.08.007

[中图分类号] R737.21 [文献标志码] A

Report on 44 cases of testicular benign tumors in children

YIN Kundang^{1, 2, 3} LIU Zhenhua^{1, 2} LI Zhiyong^{1, 2} LI Xiangdong^{1, 2}
LIU Zhuowei^{1, 2} QIN Zike^{1, 2} YE Yunlin^{1, 2}

(¹Department of Urology, Cancer Center, Sun Yat-sen University, State Key Laboratory of Oncology in South China, Guangzhou, 510060, China; ²Collaborative Innovation Center for Cancer Medicine; ³Department of Urology, Sun Yat-sen University Cancer Center Gansu Hospital)
Corresponding author: YE Yunlin, E-mail: yeyunl@sysucc.org.cn

Abstract Objective: To summarize the clinical data of benign testicular tumors, and explore the feasibility and effectiveness of testis-sparing surgery for testicular tumors in children. **Methods:** A retrospective analysis of clinical data on pediatric testicular tumors admitted to Cancer Center, Sun Yat-sen University from January 2010 to June 2023 was performed. Among them, there were 44 cases of benign testicular tumors. Preoperative evaluation data, postoperative pathological results, and follow-up data of patients with benign testicular tumors were collected, and analyzed. **Results:** Among 44 pediatric patients, there were 17 on the left side, 25 on the right side, and 2 on both sides. The age range was from 3 months to 12 years old, and the median age was 8 years old. Thirteen cases were younger than 2 years old. Among them, there were 22 cases of teratoma, 18 cases of epidermoid cyst, 2 cases of adenoma, and 2 cases of mesothelial cyst. All children were routinely tested for testicular cancer markers. Among them, 2 cases presented with elevated serum alpha fetoprotein (AFP) level, but ultrasound examination considered benign lesions. Then, both of them underwent radical orchiectomy. Preoperative ultrasound examination revealed malignant tumors in 4 patients, whose tumor markers were all within normal range. Among them, 3 underwent radical surgery and 1 underwent testis-sparing surgery. A total of 23 children underwent radical orchiectomy, while 21 cases underwent testis-sparing surgery. The follow-up period was 6—87 months, with a median time of 44 months. All interviewed patients did not have any complications such as tumor recurrence or residual testicular atrophy. **Conclusion:** Benign tumors account for a high proportion of testicular tumors in children, so perioperative evaluation of testicular tumors in children should be emphasized to avoid overtreatment.

Key words children; testicular tumor; benign tumors; testis-sparing surgery; perioperative evaluation

睾丸肿瘤是儿童最常见的实体瘤之一,但其发病率低^[1-3]。因为少见,在临床诊疗中其治疗多参

考成人睾丸肿瘤的治疗手段。近 20 年研究发现儿童睾丸肿瘤中良性肿瘤的比例显著高于成人,这对儿童睾丸肿瘤的诊断与治疗都将产生重大的影响^[1,4-6]。已有不少研究显示保留睾丸手术能有效治疗儿童睾丸良性肿瘤,并能保留睾丸功能,那么准确的术前评估对治疗方案的选择就更加关

¹中山大学肿瘤防治中心泌尿外科 华南肿瘤学国家重点实验室(广州,510060)

²肿瘤医学协同创新中心

³中山大学肿瘤防治中心甘肃医院泌尿外科

通信作者:叶云林,E-mail:yeyunl@sysucc.org.cn

键^[7-8]。回顾性分析2010年1月—2023年6月中山大学肿瘤防治中心收治的儿童睾丸良性肿瘤的临床资料,总结其围手术期评估情况,现报告如下。

1 资料与方法

1.1 临床资料

2010年1月—2023年6月本中心共收治儿童睾丸肿瘤98例,其中44例儿童睾丸良性肿瘤纳入本次研究。患儿均以“无痛性睾丸肿物”就诊,入院后采用电化学发光法检测患儿血清甲胎蛋白(alpha fetoprotein, AFP)(正常值为0~25 μg/L)、人绒毛膜促性腺激素(human chorionic gonadotropin, HCG)和乳酸脱氢酶(lactate dehydrogenase, LDH)水平。所有患儿术前均行睾丸超声检查,6例行腹盆腔CT检查评估肿瘤分期情况。

1.2 治疗方法

对于肿瘤性质不确定的患儿,术前在家属知情同意下沟通根据术中冷冻病理结果决定是否行保留睾丸手术,部分肿瘤较大患儿因正常组织太少需直接行根治性切除术。所有患儿均行经腹股沟手术,牵引出患侧睾丸后评估保留睾丸组织体积,使用血管吊带等暂时阻断精索血供,并注意使用纱布等保护腹股沟切口,避免肿瘤种植。有机会保留正常睾丸组织者,将睾丸肿瘤剜除送术中冷冻,注意保持肿瘤包膜完整。根据术中冷冻病理结果,如果考虑为良性肿瘤,则行保留睾丸手术,如为恶性肿瘤,则行睾丸根治性切除术。对于最终石蜡病理为恶性肿瘤而保留睾丸的患儿,与患儿及其家属沟通行挽救性睾丸癌根治术或保留睾丸的辅助放化疗。

1.3 随访方法

嘱患儿术后每半年返院门诊体检复查,对未至我院复查的患儿定期行电话随访,随访截止日期为2024年5月。随访内容包括患儿一般情况、生长发育、近期体格检查、肿瘤标志物(血清AFP、HCG、LDH)、影像学检查(睾丸超声和腹膜后淋巴结超声)等检查结果。

1.4 统计学方法

使用SPSS 20.0统计学软件进行数据处理。服从正态分布的计量资料采用 $\bar{X} \pm S$ 表示,比较采用t检验;偏态分布的计量资料以 $M(P_{25}, P_{75})$ 表示,2组比较采用Mann-Whitney U检验。计数资料以例(%)表示,2组比较采用 χ^2 检验。以 $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

44例患儿中左侧17例,右侧25例,双侧2例;年龄3个月~12岁,中位年龄8岁,2岁及以下13例。肿瘤最大直径0.4~5.4 cm,中位大小为1.7 cm。术前超声示高回声或不均匀回声42例,低回声2例;边界清晰37例,欠清晰7例。见表1。

最终23例患儿行根治性睾丸切除术(根治组),21例行保留睾丸手术(保留组)。术后病理均

显示为良性肿瘤,未行进一步手术或放化疗,定期门诊复查。根治组患儿肿瘤最大径较保留组大($P = 0.038$),2020年至今保留睾丸手术比例较前期显著提高(12/16 vs 9/28, $P = 0.006$)。

表1 2组患儿临床资料比较

项目	例, $M(P_{25}, P_{75})$, $\bar{X} \pm S$		P 值
	根治组 (23例)	保留组 (21例)	
年龄/岁	7(0.2,12.0)	8(0.4,12.0)	0.432
年龄<2岁	8	5	0.426
最大径/cm	2.2(0.9,5.4)	1.5(0.4,2.8)	0.038
最大径<2.0 cm	8	18	0.001
2020年前手术	19	9	0.006
AFP值升高	2	0	0.489
超声边界不清	3	4	0.587
超声见低回声	0	2	0.222
超声诊断恶性	3	1	0.609
术中冷冻病理	1	12	<0.001
手术时间/min	78.3±47.3	93.3±44.5	0.375
术后住院时间/d	4.3±2.1	3.8±1.5	0.417

术后病理结果显示畸胎瘤22例,表皮样囊肿18例,腺瘤2例,间皮囊肿2例。2例双侧睾丸肿瘤患儿两侧睾丸肿瘤病理一致,分别为表皮样囊肿和间皮囊肿。2例患儿AFP升高,分别为324 ng/mL和60 ng/mL,其年龄分别为3个月和5个月,肿瘤最大径分别为3.9 cm和2.2 cm;超声检查考虑畸胎瘤,均行根治性睾丸切除术,术后病理均为成熟性畸胎瘤。术前超声检查提示恶性肿瘤4例,肿瘤标志物均属正常范围,年龄1~10岁,肿瘤最大径1.7~2.7 cm,其中3例行根治术,1例行保留睾丸手术,术后病理为成熟性畸胎瘤和表皮样囊肿。根治组中1例患儿行术中冷冻病理提示良性肿瘤,肿瘤最大径2.7 cm,因残留正常睾丸组织少,改行根治术,石蜡病理结果为成熟性畸胎瘤。保留组中12例患儿行术中冷冻病理均提示良性肿瘤,与术后石蜡病理肿瘤性质一致。

术后随访6~87个月,中位时间为44个月。所有受访患儿均未发现肿瘤复发或者残留睾丸萎缩,未出现长发育障碍或激素水平异常。2例根治组患儿青春期出现一过性睾丸缺失相关焦虑,经调解后消失;1例保留组患儿患侧睾丸体积明显小于对侧(2.0 cm vs 3.5 cm),其他患儿双侧睾丸大小无明显差异。

3 讨论

儿童睾丸肿瘤中的恶性肿瘤大多为纯卵黄囊瘤,其余几乎均为良性肿瘤,其中畸胎瘤最为常见^[4,6]。我院2012年报道儿童睾丸肿瘤中良性肿瘤37例(34%),成熟性畸胎瘤32例(29%),略低于欧美文献报道,但与韩国多中心的报道相近,可

能与地域分布相关^[1,4,6]。对于儿童睾丸良性肿瘤,保留睾丸手术是安全可靠的治疗方式,但因为睾丸肿瘤少见,时常出现因为认识不足的情况,一律视作睾丸癌治疗,行睾丸癌根治术,最终导致过度治疗^[7,9-12]。在围手术期评估中,睾丸超声和 AFP 检测在儿童睾丸肿瘤诊断中有重要作用。在儿童睾丸肿瘤中,AFP 正常者绝大多数为良性肿瘤。而婴儿正常血清 AFP 水平较成人高,直到 1 岁左右才降至成人正常水平。因此,对于<1 岁的患儿,即使有 AFP 升高,也要结合超声检查结果考虑良性肿瘤可能,避免误诊误治^[4,6,13]。

本研究中仅 2 例婴幼儿血清 AFP 水平升高,但其超声检查显示边界清晰,因当时认识不足且肿瘤较大,均行睾丸癌根治性切除术,术后病理均为成熟性畸胎瘤。同时,术中冷冻病理结果与术后石蜡病理结果一致性高,对于术前诊断不明确的患儿,可以通过术中冷冻病理检查有效地指导手术方式的选择。本研究中行保留睾丸手术的 21 例患儿术后均未出现萎缩、肿瘤复发等异常,可见对于儿童良性肿瘤,保留睾丸手术是可靠、有效的治疗方式。我们还发现,随着对儿童睾丸肿瘤认识的加深,2020 年至今保留睾丸手术比例较前明显提高(12/16 vs 9/28)。对于睾丸肿瘤诊断不明确的儿童,可考虑行睾丸部分切除术,避免不必要的睾丸癌根治性切除,减少对患儿生理、心理的影响,且预后良好^[9,14]。最近的儿童泌尿肿瘤专家共识也认为对于不明确考虑为恶性的睾丸肿瘤,均应首选保留睾丸手术^[13]。

本研究中,术前超声和肿瘤标志物检测已诊断 36 例(81%)患儿可能为良性肿瘤,而术中冷冻病理与石蜡病理结果的一致性达到 100%。随着影像学发展和睾丸癌肿瘤标志物检查的普及,睾丸肿瘤的术前诊断也进一步准确,这将更容易筛查出儿童睾丸肿瘤中的良性肿瘤^[15]。近 20 年的研究发现,良性肿瘤在儿童睾丸肿瘤中并不少见,我们认为应仔细进行术前评估,对良性睾丸肿瘤行保留睾丸手术,尽量保留睾丸功能,这在生理和心理上对患儿都有较大的帮助。同时,借助更客观的评估工具,可以有效筛选可能完成保留睾丸手术的患儿,这样将更好地推广保留睾丸手术^[16]。

综上所述,儿童睾丸肿瘤中良性肿瘤占有较高比例,应重视儿童睾丸肿瘤围手术期评估。结合术前超声及肿瘤标志物等检查可初步判断睾丸肿瘤性质,有条件的中心可行超声造影检查,相较于常规超声有更高的准确性。对于诊断为良性睾丸肿瘤,应与患儿及家属充分沟通,不愿接受手术者需要定期随访,监测肿瘤进展情况。对于诊断良性肿瘤且有手术意愿者,或肿瘤性质不确定者,可结合术中冷冻病理行保留睾丸手术,避免过度治疗。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

- [1] Lee SD, Korean Society of Pediatric Urology. Epidemiological and clinical behavior of prepubertal testicular tumors in Korea[J]. J Urol, 2004, 172(2):674-678.
- [2] Kaplan GW, Cromie WC, Kelalis PP, et al. Prepubertal yolk sac testicular tumors: report of the testicular tumor registry[J]. J Urol, 1988, 140(5 Pt 2):1109-1112.
- [3] Kusler KA, Poynter JN. International testicular cancer incidence rates in children, adolescents and young adults[J]. Cancer Epidemiol, 2018, 56:106-111.
- [4] Ye YL, Sun XZ, Zheng FF, et al. Clinical analysis of management of pediatric testicular germ cell tumors [J]. Urology, 2012, 79(4):892-897.
- [5] Cost NG, Lubahn JD, Adibi M, et al. A comparison of pediatric, adolescent, and adult testicular germ cell malignancy[J]. Pediatr Blood Cancer, 2014, 61(3):446-451.
- [6] Pohl HG, Shukla AR, Metcalf PD, et al. Prepubertal testis tumors: actual prevalence rate of histological types[J]. J Urol, 2004, 172(6 Pt 1):2370-2372.
- [7] 徐雪莲,叶云林,郭胜杰,等.儿童睾丸良性肿瘤临床分析[J].南方医科大学学报,2014,34(9):1384-1385,1389.
- [8] Woo LL, Ross JH. The role of testis-sparing surgery in children and adolescents with testicular tumors[J]. Urol Oncol, 2016, 34(2):76-83.
- [9] Ye YL, He QM, Zheng FF, et al. Trends of testis-sparing surgery for pediatric testicular tumors in South China[J]. BMC Surg, 2017, 17(1):31.
- [10] Kooij CD, Hulsker CCC, Kranendonk MEG, et al. Testis sparing surgery in pediatric testicular tumors [J]. Cancers(Basel), 2020, 12(10):2867.
- [11] Caldwell BT, Saltzman AF, Maccini MA, et al. Appropriateness for testis-sparing surgery based on the testicular tumor size in a pediatric and adolescent population[J]. J Pediatr Urol, 2019, 15(1):70. e1-70. e6.
- [12] Bois JI, Vagni RL, de Badiola FI, et al. Testis-sparing surgery for testicular tumors in children: a 20 year single center experience and systematic review of the literature[J]. Pediatr Surg Int, 2021, 37(5):607-616.
- [13] Stein R, Quaedackers J, Bhat NR, et al. EAU-ESPU pediatric urology guidelines on testicular tumors in prepubertal boys[J]. J Pediatr Urol, 2021, 17(4):529-533.
- [14] Woo LL, Ross JH. Partial orchiectomy vs. radical orchiectomy for pediatric testis tumors[J]. Transl Androl Urol, 2020, 9(5):2400-2407.
- [15] Wakileh GA, Ruf C, Heidenreich A, et al. Contemporary options and future perspectives: three examples highlighting the challenges in testicular cancer imaging[J]. World J Urol, 2022, 40(2):307-315.
- [16] Liu ZH, Xie JY, Gao XF, et al. SAVE Testis-sparing score:a multicenter retrospective study of a novel predictive tool for quantifying testicular tumors[J]. Int J Surg, 2023, 109(12):4185-4198.

(收稿日期:2024-06-03)