

·临床研究·

婴幼儿 I 期睾丸卵黄囊瘤的临床分析(附 10 例报告)

叶云林^{1,2}, 秦自科^{1,2}, 周芳坚^{1,2}, 韩 辉^{1,2},
刘卓炜^{1,2}, 余绍龙^{1,2}, 李永红^{1,2}, 陈壮飞^{1,2}

Clinical Analysis of Stage I Pediatric Testicular Yolk Sac Tumors: A Report of Ten Cases

YE Yun-Lin^{1,2}, QIN Zi-Ke^{1,2}, ZHOU Fang-Jian^{1,2}, HAN Hui^{1,2}, LIU Zhuo-Wei^{1,2},
YU Shao-Long^{1,2}, LI Yong-Hong^{1,2}, CHEN Zhuang-Fei^{1,2}

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

1. State Key Laboratory of
Oncology in South China,
Guangzhou, Guangdong, 510060,
P. R. China
2. Department of Urology,
Cancer Center,
Sun Yat-sen University,
Guangzhou, Guangdong, 510060,
P. R. China

通讯作者: 秦自科

Correspondence to: QIN Zi-Ke

Tel: 86-20-87343309

Fax: 86-20-87343295

E-mail: qinzike@263.net

收稿日期: 2008-03-13

修回日期: 2008-05-06

[ABSTRACT] BACKGROUND & OBJECTIVE: At present, pediatric testicular yolk sac tumor is hard to be diagnosed at early stage, and the treatment strategy for this disease after radical inguinal orchiectomy is uncertain. This study was to summarize our experience in diagnosing and treating clinical stage I pediatric testicular yolk sac tumors. **METHODS:** Clinical data of ten patients with clinical stage I pediatric testicular yolk sac tumors treated from July 2001 to June 2007 were analyzed. **RESULTS:** Testicular masses with low or uneven echoes were detected by B ultrasound in 11 testes of ten patients. The serum level of alpha fetoprotein (AFP) was increased in nine patients. Radical inguinal orchiectomy (RIO) was performed for all patients whereas chemotherapy was not administered preoperatively. Pathology examination was used to confirm the diagnosis of yolk sac tumor. One patient with vascular invasion and another one with bilateral testicular yolk sac tumor received cisplatin-based adjuvant chemotherapy. Retroperitoneal lymph node dissection (RPLND) was not performed in these patients. No recurrence was found in nine patients during follow-up with a mean of 3 years. The patient with bilateral testicular tumor had retroperitoneal and lung metastases at 23 months after adjuvant chemotherapy, and achieved complete remission again after salvage chemotherapy. **CONCLUSIONS:** With the combination of B ultrasound and serum AFP level, we can assess and diagnose stage I pediatric testicular yolk sac tumor. RIO could be used to treat it with good outcomes, while RPLND is not necessary. Chemotherapy is recommended to treat patients with high-risk of relapse.

KEYWORDS: Children; Pediatric testicular neoplasm; Yolk sac; Diagnosis; Treatment

【摘要】背景与目的:目前婴幼儿 I 期睾丸卵黄囊瘤早期诊断困难,且行睾丸癌根治术后的治疗方案不确定。本文旨在对此进行进一步的探讨。**方法:**回顾性分析中山大学肿瘤防治中心 2001 年 7 月至 2007 年 6 月收治的 10 例婴幼儿临床 I 期睾丸卵黄囊瘤的临床资料。**结果:**10 例患者 11 侧睾丸术前阴囊 B 超检查提示睾丸实性肿物,呈低回声或不均匀回声;9 例患者血清甲胎蛋白(alpha fetoprotein, AFP)水平升高。10 例均行睾丸癌根治术,术前均未行化疗,术后病理检查确诊卵黄囊瘤。其中 1 例双侧睾丸卵黄囊瘤和 1 例病理报告见卵黄囊瘤脉管浸润者予以辅助化疗。本组 10 例均未行腹膜后淋巴结清扫术。9 例患者平均随访 3 年多未见复发和进展,1 例双侧睾丸卵黄囊瘤患者辅助化疗结束后随访 23 个月时发现腹膜后及肺部转移,再次化疗后完全缓解。**结论:**婴幼儿临床 I 期睾丸卵黄囊瘤可根据 B 超和血清 AFP 检查结果初步诊断。行单纯睾丸癌根治术即可达到良好效果,不必行腹膜后淋巴结清扫术。对于高危的患儿可予以辅助化疗。

关键词: 婴幼儿; 睾丸肿瘤; 卵黄囊瘤; 诊断; 治疗
中图分类号: R737.14 文献标识码: A
文章编号: 1000-467X(2008)11-1226-03

婴幼儿睾丸卵黄囊瘤临床少见,但在婴幼儿生殖系统原发肿瘤中,则为最常见的肿瘤。睾丸原发肿瘤病理类型多样,早期诊断卵黄囊瘤比较困难,其治疗除睾丸癌根治术外尚无确定的治疗方案。我院自 2001 年 7 月至 2007 年 6 月共收治 11 例,1 例出院后失访,现报道 10 例,对婴幼儿早期睾丸卵黄囊瘤的诊断和治疗方法做一探讨。

1 资料与方法

1.1 临床资料

10 例婴幼儿临床 I 期卵黄囊瘤患者年龄 4 个月至 3 岁,中位年龄 11.5 个月,2 岁及 2 岁以下 8 例;左侧 6 例,右侧 3 例,双侧 1 例。均以无痛性睾丸肿物就诊,无隐睾病史,母亲妊娠期间无特殊用药史。1 例出生于银铅矿区。9 例体检患侧睾丸肿大质硬,术前 B 超示低回声或不均匀回声。1 例双侧睾丸肿瘤患者右侧睾丸可及明显肿物,左侧睾丸肿物不明显,B 超示双侧睾丸不均匀回声;术中探查活检见双侧睾丸卵黄囊瘤。胸片未见异常,腹腔和盆腔 CT 或 B 超均未发现腹膜后肿大淋巴结。用电化学发光法检测患儿血清甲胎蛋白(alpha fetoprotein,AFP)水平,其范围为 12.79 μg/L~>121 000 μg/L(正常值为 0.00~25.00 μg/L),其中 9 例升高,4 例>1 000 μg/L,3 例>10 000 μg/L,人绒毛膜促性腺激素(human chorionic gonadotrophin,HCG)和乳酸脱氢酶(lactate dehydrogenase,LDH)

均正常。术前检查血常规、肝肾功能等无异常。临床诊断均为 I 期睾丸卵黄囊瘤。

1.2 治疗方法

10 例均经腹股沟切口行睾丸癌根治术,病理为卵黄囊瘤,鞘膜及精索未见浸润,其中 1 例脉管内有肿瘤浸润,术后均未行腹膜后淋巴结清扫。1 例双侧睾丸卵黄囊瘤患者行右侧睾丸根治性切除后,探查活检对侧睾丸见卵黄囊瘤组织,改为双侧睾丸癌根治术。肿瘤最大直径 1.5~5.0 cm,平均 3.2 cm。双侧睾丸卵黄囊瘤患者予以辅助化疗 EP 方案(VP-16, 100 mg/m², d1~5; DDP, 20 mg/m², d1~5;三周一疗程)3 疗程,脉管内肿瘤浸润患者用 BEP 方案(BLM, 10 mg/m², d1, d5; VP-16, 100 mg/m², d1~5; DDP, 20 mg/m², d1~5;三周一疗程)化疗 2 疗程。

1.3 随访方法

10 例均行电话随访,随访截止日期为 2008 年 3 月 23 日。随访内容包括患儿一般情况,生长发育,出院后检查治疗情况及最近复查结果。

2 结 果

10 名患儿均痊愈出院,出院时复查血清 AFP 已明显下降,1 个月后均恢复正常。随访 8~79 个月(平均 42 个月)。1 例双侧睾丸卵黄囊瘤患者辅助化疗结束后随访 23 个月时发现腹膜后、肺部转移,予以化疗 BEP 方案 4 疗程后完全缓解,化疗结束后随访 25 个月未见复发及进展。1 例有卵黄囊瘤脉管浸润患者化疗结束后随访 53 个月未见复发。随访未满 3 年的 4 例也未见肿瘤复发及进展(见表 1)。

表 1 10 例婴幼儿临床 I 期睾丸卵黄囊瘤临床资料
Table 1 Clinical data of 10 patients with clinical stage I pediatric testicular yolk sac tumor

Case No.	Age(months)	Tumor site	AFP(μg/L)	Tumor size (cm)	Postoperative adjuvant chemotherapy	Follow-up (months)	Outcome
1	4	Left testis	63	1.5×1.5	No	79	No relapse
2	10	Right testis	215	4.0×3.0	No	77	No relapse
3	24	Left testis	2 054	3.0×2.5	BEP regimens,2 cycles	56	No relapse
4	36	Both testes	5 825	R:5.0×4.0; L:2.0×1.0	EP regimens,3 cycles; BEP regimens,4 cycles	54	Retroperitoneal and lung metastasis after 23 months
5	30	Left testis	>121 000	2.0×2.0	No	49	No relapse
6	8	Right testis	1 009	3.0×2.0	No	43	No relapse
7	11	Left testis	13	4.0×3.0	No	27	No relapse
8	24	Left testis	1 572	2.5×2.5	No	17	No relapse
9	12	Right testis	22 857	4.0×3.0	No	10	No relapse
10	5	Left testis	20 917	3.0×2.0	No	8	No relapse

AFP, alpha fetoprotein; RIO, Radical inguinal orchiectomy.

3 讨 论

卵黄囊瘤也称为内胚窦瘤,发病率较低,约 0.1/10 万,但在婴幼儿恶性睾丸肿瘤中是最常见的类型^[1,2]。魏光辉等^[3]报道 66 例小儿睾丸肿瘤,原发肿瘤 48 例,其中卵黄囊瘤 34 例,占睾丸原发肿瘤 70.8%。美国 SEER (Surveillance Epidemiology and End Results)资料显示小儿卵黄囊瘤占睾丸肿瘤比例为 93/124(75.0%)^[4],德国一份多中心肿瘤登记资料显示卵黄囊瘤占小儿睾丸原发肿瘤比例为 117/173(67.6%)^[5]。我院 2001 年 12 月至 2007 年 6 月共收治 19 例小儿睾丸原发肿瘤,其中卵黄囊瘤占 11 例(57.9%),与国内外文献报道相符。

小儿睾丸卵黄囊瘤术前诊断无特异性,均表现为阴囊肿物。阴囊 B 超可以鉴别阴囊内囊性或实性肿物。我院卵黄囊瘤 B 超均表现为混合或低回声实性肿块。血清 AFP 水平升高提示小儿睾丸卵黄囊瘤可能大,有报道显示,近 90% 小儿卵黄囊瘤血清 AFP 水平升高,且卵黄囊瘤为小儿睾丸生殖细胞瘤最常见类型,其次为畸胎瘤,不伴血清 AFP 升高^[6]。

对于 AFP 水平正常的患儿,不排除睾丸良性肿瘤可能,而睾丸肿瘤在诊疗早期都应按恶性肿瘤处理,以免造成局部复发、转移等严重后果。为了保证治疗效果并尽量保留功能,对可疑的小儿睾丸良性肿瘤,则先经腹股沟阻断精索,探查活检,若为良性则行保留睾丸的肿瘤切除术^[7]。多中心报道保留睾丸的睾丸良性肿瘤切除术安全可靠,有随访 10 年以上无复发、睾丸萎缩等并发症的报道^[1]。

对于根治术后确诊的临床 I 期小儿睾丸卵黄囊瘤,近年文献示单纯睾丸癌根治术即可达到良好的治疗效果,对于是否行腹膜后淋巴结清扫或辅助化疗尚无定论^[8,9]。有研究认为,睾丸卵黄囊瘤主要通过血行转移,最常见转移为肺转移,腹膜后转移较少^[10]。国内复旦大学儿科医院(原上海医科大学儿科医院)资料显示,小儿睾丸卵黄囊瘤根治术后不需行腹膜后淋巴结清扫术,因为腹膜后淋巴结转移少见,认为腹膜后淋巴结清扫术无法改善预后,并可能引起射精障碍、围手术期死亡等严重并发症^[11]。有文献报道对临床 I 期小儿睾丸卵黄囊瘤予以术后辅助化疗是安全、有效的^[12,13]。

随着影像学的发展,以及血清 AFP 水平与卵黄囊瘤复发转移的密切相关,密切随访能及早的发现复发转移。目前倾向于行单纯睾丸癌根治术,对肺转移者再行化疗,对腹膜后转移患者则行腹膜后

淋巴结清扫。本组 10 例临床 I 期小儿睾丸卵黄囊瘤中 8 例只行单纯睾丸癌根治术,效果良好,随访至今未见复发转移。1 例脉管浸润患者术后予以 BEP 方案 2 疗程,未见复发转移。1 例双侧睾丸卵黄囊瘤患者予以 EP 方案 3 疗程辅助化疗,随访 23 个月出现腹膜后、肺转移,再次予以 PEB 方案化疗后达到完全缓解,随访 25 个月未见复发、进展。

我们认为,小儿临床 I 期卵黄囊瘤患者,单纯睾丸癌根治术即可达到良好效果,不需行腹膜后淋巴结清扫术。对于复发进展危险性高(脉管浸润)的患儿应予以标准 BEP 方案辅助化疗 2~3 疗程。对术后腹膜后、肺转移患者,化疗可取得良好效果。

[参 考 文 献]

- [1] Oottamasathien S, Thomas J C, Adams M C, et al. Testicular tumors in children: a single-institutional experience [J]. BJU Int, 2007,99(5):1123-1126.
- [2] Agarwal P K, Palmer J S. Testicular and paratesticular neoplasms in prepubertal males [J]. J Urol, 2006,176(3): 875-881.
- [3] 魏光辉,李旭良,龚以榜,等. 81 例小儿无痛性阴囊肿块的临床特点分析 [J]. 中华泌尿外科杂志, 2001,22(8):506-507.
- [4] Walsh T J, Grady R W, Porter M P, et al. Incidence of testicular germ cell cancers in U.S. children: SEER program experience 1973 to 2000 [J]. Urology, 2006,68(2):402-405.
- [5] Stang A, Rusner C, Eisinger B, et al. Subtype-specific incidence of testicular cancer in Germany: a pooled analysis of nine population-based cancer registries [J]. Int J Androl, 2007,30(1):1-11.
- [6] 文建军,杜长青,文建国,等. 实体肿瘤患儿血清 AFP 监测 [J]. 郑州大学学报:医学版, 2002,37(1):65-67.
- [7] 王 政,刘贵麟,王 燕,等. 保留睾丸手术治疗睾丸良性肿瘤疗效分析 [J]. 实用儿科临床杂志, 2003,18(10):833-834.
- [8] 曾向阳,秦国庆,刘水清,等. 小儿早期睾丸卵黄囊瘤 12 例报告 [J]. 临床泌尿外科杂志, 2004,19(1):13-14.
- [9] Terenziani M, Piva L, Spreafico F, et al. Clinical stage I nonseminomatous germ cell tumors of the testis in childhood and adolescence:an analysis of 31 cases [J]. J Pediatr Hematol Oncol, 2002,24(6):454-458.
- [10] Grady R W, Ross J H, Kay R. Patterns of metastatic spread in prepubertal yolk sac tumor of the testis [J]. J Urol, 1995,153(4):1259-1261.
- [11] 胡承冈,金百祥. 腹膜后淋巴结清扫术在小儿睾丸卵黄囊瘤的应用评价 [J]. 中华小儿外科杂志, 1993,14(4):213-214.
- [12] 鲁 力,马建辉,李长岭. 睾丸内胚窦瘤(附 6 例报告) [J]. 中国医刊, 2005,40(10):36-38.
- [13] 孙晓非,杨群英,甄子俊,等. 44 例儿童青少年恶性生殖细胞肿瘤综合治疗结果分析 [J]. 癌症, 2006,25(12):1529-1532.

[编辑及校对:杨允贵]