

论著·临床研究

doi:10.3969/j.issn.1671-8348.2022.05.016

网络首发 [https://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1097.R.20220218.1430.002.html\(2022-02-18\)](https://kns.cnki.net/kcms/detail/50.1097.R.20220218.1430.002.html(2022-02-18))

巨大肾上腺畸胎瘤伴局部恶变 1 例报道并文献复习*

朱天宇, 王国俊[△]

(郑州大学第一附属医院普外科, 郑州 450000)

[摘要] **目的** 探讨肾上腺畸胎瘤的临床表现及诊治方式。**方法** 回顾性分析该院收治的 1 例巨大肾上腺成熟性伴局部恶变畸胎瘤患者的临床资料,并结合国内外文献进行复习讨论。**结果** 患者以腹痛、腹胀、腹部巨大肿块为主要临床表现,影像学检查见巨大腹腔肿瘤、部分轻度强化软组织影、点线状钙化,伴脏器受压,肿块与左肾上腺有密切联系,左肾上腺区缺如,此外,部分肿瘤标志物升高。遂予以开放手术切除与术后腹腔热灌注治疗,病理示肾上腺成熟型畸胎瘤伴局灶恶变,术后恢复良好出院,随访 1 个月未见肿瘤复发、转移。**结论** 肾上腺畸胎瘤临床较罕见,首选手术治疗。

[关键词] 肾上腺肿瘤;畸胎瘤;诊断;治疗;病例报道**[中图法分类号]** R6 **[文献标识码]** A **[文章编号]** 1671-8348(2022)05-0794-03

Giant adrenal teratoma with local malignant transformation: a case report and literature review*

ZHU Tianyu, WANG Guojun[△]

(Department of General Surgery, the First Affiliated Hospital of Zhengzhou University,
Zhengzhou, Henan 450000, China)

[Abstract] **Objective** To investigate the clinical manifestations, diagnostic and treatment methods of adrenal teratoma. **Methods** The clinical data of a case of giant adrenal mature teratoma with local malignant transformation treated in our hospital were analyzed retrospectively, and the literature at home and abroad was reviewed and discussed. **Results** The main clinical manifestations of the patient were abdominal pain, abdominal distention and huge abdominal mass. Imaging examination showed huge abdominal tumor, some mild enhanced soft tissue shadow, dotted and linear calcification, accompanied by organ compression. The mass was closely related to the upper pole of the left kidney, and the left adrenal region was absent. In addition, some tumor markers were elevated. The patient was treated with open surgical resection and postoperative intraperitoneal hyperthermic perfusion. Pathological examination showed mature adrenal teratoma with local malignant transformation. The patient recovered well after operation and was discharged from the hospital. There was no tumor recurrence and metastasis after follow-up for 1 month. **Conclusion** Adrenal teratoma is rare in clinic, and surgical treatment is preferred.

[Key words] adrenal gland tumor; teratoma; diagnosis; treatment; case report

畸胎瘤是常见于卵巢和睾丸的生殖细胞肿瘤,具有多项分化的潜能,其内部可见来源于不同胚层的组织。腹膜后来源的畸胎瘤较少,其中发生于肾上腺的畸胎瘤非常罕见^[1]。本文总结收治的 1 例巨大左侧肾上腺成熟性畸胎瘤伴局部恶变患者的诊治过程,现报道如下。

1 临床资料

患者,女,52 岁,因“发现左侧腹部包块 6 个月”于

2021 年 8 月 19 日入院。6 个月前患者触及左侧腹部包块,伴轻度压痛、腹胀,未做处理。入院前 1 d 当地医院腹部彩超示腹腔内巨大囊实混合性包块,CT 平扫示腹腔内巨大占位,遂于本院治疗。入院查体:体温 36.6℃,脉搏 72 次/分钟,呼吸 18 次/分钟,血压 132/75 mm Hg。腹膨隆,柔软,可触及巨大包块,大小约 15 cm×15 cm,质硬,活动度差。增强 CT 显示腹腔巨大囊性占位,内见多个纤维间隔影,大小约

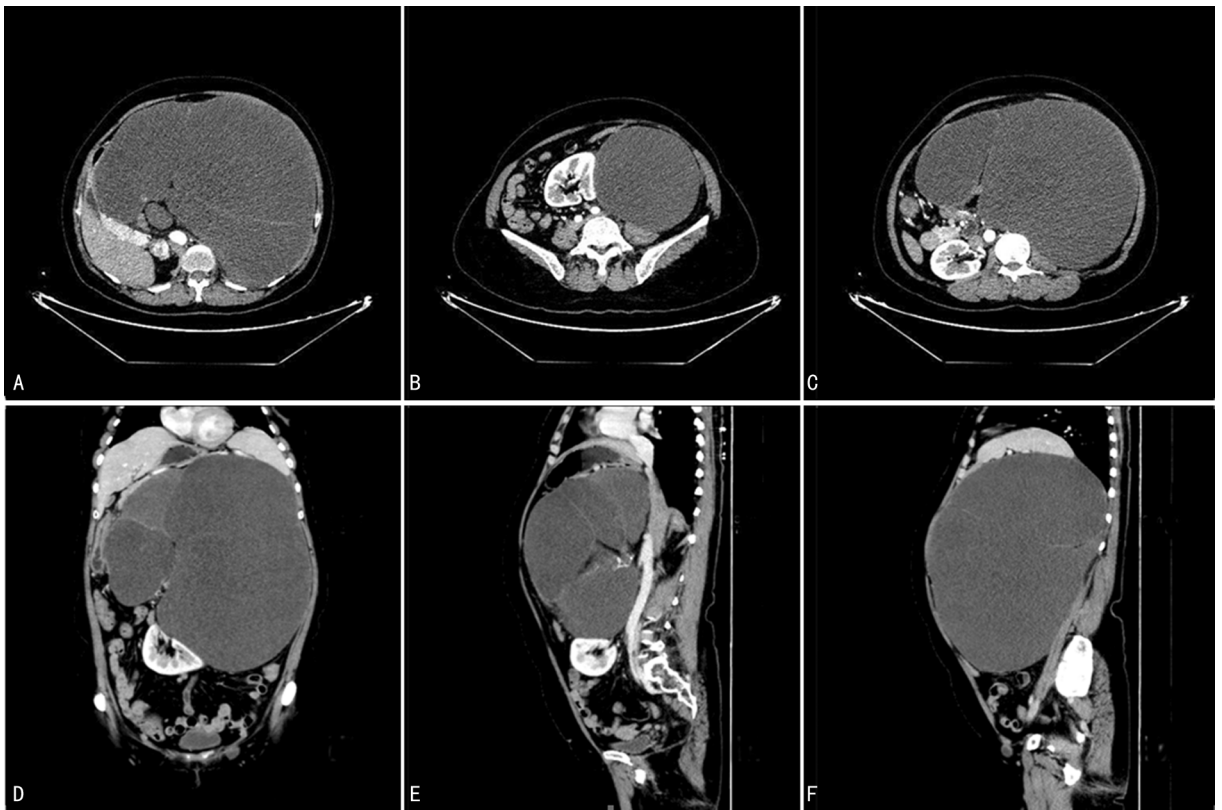
* 基金项目:河南省省重点研发与推广专项(科技攻关)项目(202102310117)。 作者简介:朱天宇(1996-),住院医师,硕士,主要从事腹部疾病诊疗研究。 [△] 通信作者, E-mail: fccwanggj@zzu.edu.cn。

27.7 cm×23.9 cm×30.3 cm,局部见点线状钙化灶,有部分软组织片状影呈轻度强化。周围脏器均明显受压移位,肝脏向右后移位,脾脏向上移位,右侧肾脏形态大小正常,左侧肾移位至盆腔,肾门扭转向脊柱方向,肿块与左肾上腺极有密切联系,左肾上腺区缺如,见图 1。癌胚抗原(CEA)86.60 ng/mL,CA72-4 87.6 U/mL。

根据病史及各项术前检查,排除手术禁忌,行开放手术切除肿块。取上腹正中切口,进腹见左上腹巨大肿物,最大直径约 30 cm,包膜完整,肿块位于左肾上腺极,外层包膜下可见黄色脂肪样组织,考虑肿块来源于肾上腺。因肿块张力高、活动度差,无法直接游离,遂于肿块前壁作一小切口,用负压吸引器吸出瘤

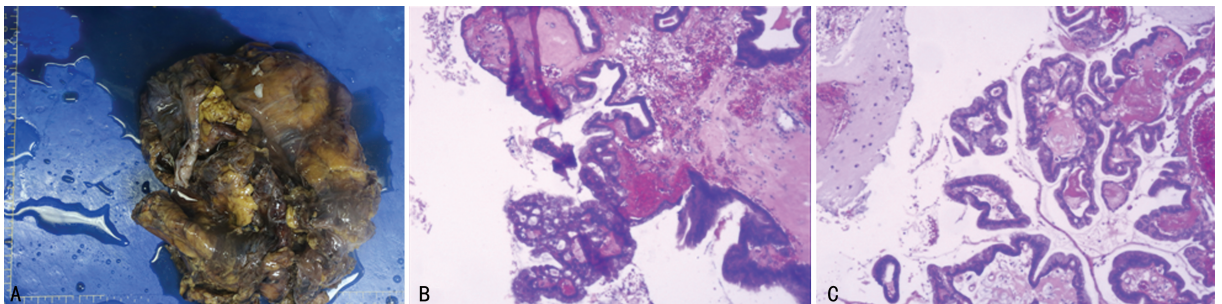
内淡黄色透亮胶冻样黏液与白色蜡质固体约 4 000 mL,再次探查可见肿块张力降低,活动度改善。钝锐性结合分离肿块与周围脏器间的疏松结缔组织,保证其余包膜完整,将肿块游离后离断周围滋养血管,完整移除肿块。术后病理示左侧肾上腺成熟性囊性畸胎瘤,肿瘤内部内胚层肠道上皮高级别上皮内瘤变,小灶区域考虑恶变为微小肠型腺癌,病变局限于囊内壁浅层,见图 2。

因肿瘤局灶恶变且术中囊壁被打开,患者分别于术后第 3、5 天行腹腔热灌注治疗 2 次。术后恢复顺利出院,随访时间 1 个月,期间未见肿瘤复发或转移,预后良好,现持续随访中。



A:腹腔巨大占位水平位截面,肿物占腹腔大部,有纤维间隔影;B、C:腹腔占位与左肾关系密切,左肾被挤压移位,右肾位置正常;D、E、F:腹腔占位冠状位、矢状位截面,可见腹腔占位内部密度不均,局部点线状钙化灶,腹腔脏器受压移位。

图 1 腹部增强 CT



A:肿瘤实性部分大体标本,可见包膜下的黄色脂肪组织;B、C:病理切片,可见内胚层肠道上皮高级别上皮内瘤变,局部恶变为微小肠型腺癌(苏木素-伊红染色,×40)。

图 2 大体标本与病理结果

2 讨 论

畸胎瘤起源于外周多能干细胞,分为成熟性畸胎瘤和非成熟性畸胎瘤,肿瘤形态可为囊性、实性、囊实性或多房结构,其中成熟性畸胎瘤最常见,约占 95%^[2]。成熟性畸胎瘤多为囊性,肿瘤内部可见内、中、外胚层来源的组织,如脂肪、牙齿、毛发等^[3],成熟性畸胎瘤多为良性肿瘤,但存在恶变可能。畸胎瘤多见于性腺,如睾丸、卵巢,来源于肾上腺的畸胎瘤非常罕见。HE 等^[4]通过查阅 1990—2020 年的肾上腺畸胎瘤报道,仅收集到 32 例患者。国内肾上腺畸胎瘤多发于右侧肾上腺^[5],本例患者为左侧巨大肾上腺畸胎瘤,CT 所见大小为 27.7 cm×23.9 cm×30.3 cm,现有国外 1 例报道肿瘤体积(38.0 cm×30.0 cm×30.0 cm)大于本例^[6]。肾上腺畸胎瘤多无特殊临床症状,早期难以发现,部分肿瘤体积较大的患者可因压迫周围脏器、血管或组织表现出腹痛、腹胀、腰痛甚至肠梗阻症状^[7]。本例患者既往无特殊不适,仅就诊 6 个月前发现左侧腹部可触及质硬包块,此后随肿瘤增大出现腹痛、腹胀症状,临床表现与既往报道相符。

辅助检查是诊断肾上腺畸胎瘤的重要手段,其中 CT、超声等影像学检查对肾上腺畸胎瘤的诊断、定位及决定治疗方案具有重要作用。肾上腺畸胎瘤的超声表现可为不均匀的囊实性混合型包块,具有一定诊断价值,而 CT 检查可清晰显示肿块位置、大小及内部组织成分,并明显强化肿块的分隔和包膜,在定性诊断上优于超声^[8-9]。肾上腺畸胎瘤的典型 CT 表现主要包括:(1)强化不均匀的软组织、脂肪或液性区域;(2)斑点、斑块状、弧形的高密度钙化区域,这常被认为是特征性表现^[10-11];(3)肿块较大时可见患侧肾上腺缺如。肾上腺畸胎瘤患者的实验室检查通常无特异性变化,可以此与其他肾上腺肿瘤相鉴别。此外,肿瘤标志物被认为可在一定程度上区分肾上腺畸胎瘤的良恶性^[12]。本例患者术前肿瘤标志物检测示 CEA 升高,这与 TOJAL 等^[13]的报道相同。术后病理是确诊肾上腺畸胎瘤的金标准,病理镜下成熟性畸胎瘤具有不同胚层的组织,如皮肤、脂肪组织、骨或上皮等。本例患者 CT 可见腹腔巨大囊性占位和内部多个间隔,但仅有少量软组织呈轻度强化,脂肪密度影较少,且钙化灶不明显,主要确诊依据为肿块与左肾上极关系密切,术后大体标本见黄色脂肪样组织,病理检出肿瘤内部来源于内胚层的上皮组织。

手术切除是治疗肾上腺畸胎瘤的首选方式,目前认为对直径<6 cm 的肾上腺肿瘤,可行腹腔镜下切除,以减少手术创伤、缩短术后恢复时间^[14],但对较大或已压迫周围脏器的肿瘤,仍推荐行开放手术切除。对于成熟性畸胎瘤,原则上应完整切除肿块,以降低术后复发或转移的可能,成熟性畸胎瘤发生恶变情况极

少^[15]。有学者认为成熟性肾上腺畸胎瘤分化程度高,对放化疗不敏感,故术后不必放化疗,可定期随访^[16-17]。而对未成熟性畸胎瘤,需要在手术完整切除后,给予 VAC 方案(长春新碱、环磷酰胺、放线菌素 D)、PVB 方案(顺铂、长春新碱、博莱霉素)或 PEB 方案(顺铂、依托泊苷、博莱霉素)联合化疗,并终生随访^[12]。本例报告所见成熟性肾上腺畸胎瘤体积巨大,术中见肿瘤张力较高,且活动度差,直接游离肿块有囊壁破裂风险,因此,于肿瘤前壁行微小切口吸引内部的黏液与固体,待张力降低与活动度改善后,在保证其余包膜完整的情况下行肿瘤切除。术后病理见局灶恶变,为预防术中肿瘤包膜切口导致肿瘤细胞扩散,患者术后行 2 次腹腔热灌注治疗。本例患者术后随访 1 个月,未发现复发转移,预后良好,表明手术与个体化后续治疗对该病有良好效果。考虑本病例为成熟性肾上腺畸胎瘤,恶变区域仅局限于包膜内,按照以往报道经验,后续密切随访。

综上所述,巨大肾上腺畸胎瘤是一类极罕见的生殖细胞肿瘤,其临床表现缺乏特异性,诊断主要依赖影像学检查及术后病理。手术切除为主要治疗方式,可取得良好预后,后续治疗方案需根据患者自身情况制订。

参考文献

- [1] 孙承文,孙健,李光,等. 肾上腺畸胎瘤 1 例报告并文献复习[J]. 现代泌尿生殖肿瘤杂志,2014,6(1):8-10.
- [2] 杨过,孟庆军,田雨冬,等. 13 例肾上腺畸胎瘤临床诊疗分析并文献复习[J]. 河南外科学杂志,2021,27(1):20-24.
- [3] ZHOU L, PAN X, HE T, et al. Primary adrenal teratoma: a case series and review of the literature[J]. *Mol Clin Oncol*, 2018, 9(4): 437-442.
- [4] HE C, YANG Y, YANG Y, et al. Teratoma of the adrenal gland: clinical experience and literature review[J]. *Gland Surg*, 2020, 9(4): 1056-1064.
- [5] 陆祺中,曾学明. 左肾上腺畸胎瘤 1 例报告[J/CD]. 临床医药文献电子杂志,2020,7(58):164-165.
- [6] POLO J L, VILLAREJO P J, MOLINA M, et al. Giant mature cystic teratoma of the adrenal region[J]. *AJR Am J Roentgenol*, 2004, 183(3):837-838.
- [7] 曾庆松,肖亚军,邢毅飞,等. 肾上腺巨大成熟性畸胎瘤 1 例并文献复习[J]. 国际泌尿系统杂志,2014,34(3):369-371. (下转第 801 页)

表探讨住院 2 型糖尿病患者焦虑抑郁的发生风险[J]. 中国糖尿病杂志, 2019, 27(9): 671-676.

- [17] 万俊刚. 医院焦虑和抑郁量表在综合性医院住院患者中应用的信度和效度分析[J]. 世界最新医学信息文摘, 2018, 18(54): 55-56.
- [18] VINCZE A, LOSONCZI A, STAUDER A. The validity of the diabetes self-management questionnaire (DSMQ) in Hungarian patients with type 2 diabetes [J]. Health Qual Life Outcomes, 2020, 18(1): 344.
- [19] 李超群. 糖尿病自我管理量表的汉化及信效度评价[D]. 石家庄: 河北大学, 2018.
- [20] 张红梅, 傅荣, 张宁. 正念疗法对糖尿病患者糖尿病相关心理痛苦影响的 Meta 分析[J]. 护理学报, 2019, 26(13): 44-49.
- [21] 张洁, 许翠萍, 吴红霞, 等. 2 型糖尿病患者疾病痛苦及相关因素分析[J]. 护理管理杂志, 2013, 13(5): 331-333.
- [22] WANG L, GAO P, ZHANG M, et al. Prevalence and ethnic pattern of diabetes and prediabetes in China in 2013 [J]. JAMA, 2017, 317(24): 2515-2523.

- [23] 王玮荻, 何梅. 正念疗法对糖尿病患者负性情绪和血糖控制效果的 Meta 分析[J]. 护理学杂志, 2016, 31(3): 13-17.
- [24] 高俊香, 杨俊花, 赵秀君, 等. 正念训练对 2 型糖尿病患者心理痛苦及生活质量的影响[J]. 中华现代护理杂志, 2018, 24(2): 186-190.
- [25] 尉颖, 刘海燕, 刘虹, 等. 青年 2 型糖尿病合并抑郁状态合并抑郁状态患者糖尿病自我管理 with 糖尿病知识、糖尿病自我管理态度的相关性研究[J]. 护理研究, 2018, 32(22): 3625-3627.
- [26] 李莉, 李英华, 聂雪琼, 等. 我国 6 省糖尿病患者自我管理行为调查[J]. 中国健康教育, 2014, 30(1): 16-19.
- [27] 陈香, 欧阳珊, 罗宜红, 等. 医护一体化管理模式在糖尿病患者护理中的效果观察[J]. 中国医药科学, 2020, 10(15): 205-208.
- [28] 赵琼玲, 秦月兰, 李珍, 等. 基于微信平台的动机性访谈策略在中青年 2 型糖尿病合并抑郁状态合并抑郁状态患者中的应用研究[J]. 中华现代护理杂志, 2020, 26(9): 1218-1223.

(收稿日期: 2021-05-29 修回日期: 2021-10-16)

(上接第 796 页)

- [8] 肖峻, 朱明, 吴绍山, 等. 肾上腺成熟畸胎瘤的临床特征及治疗[J]. 实用肿瘤杂志, 2013, 28(6): 618-620.
- [9] 黄东方, 王云炎. 左肾上腺囊性成熟性畸胎瘤 1 例报告[J]. 南方医科大学学报, 2013, 33(1): 3.
- [10] 柏拉拉, 江林, 刘衡, 等. 肾上腺畸胎瘤 1 例报告并文献复习[J]. 实用放射学杂志, 2014, 30(12): 2122.
- [11] 谈宜傲, 周林玉, 董晓程, 等. 肾上腺成熟性畸胎瘤 2 例报告[J]. 临床误诊误治, 2015, 31(6): 28-30.
- [12] 赵世明, 杨锦建, 贾占奎. 肾上腺成熟性畸胎瘤 1 例报告并文献复习[J]. 临床泌尿外科杂志, 2012, 27(12): 950-951.
- [13] TOJAL A, SANTOS N, VICENTE J, et al. Retroperitoneal mature cystic teratoma involving the left adrenal gland in a 75-year-old male: a case report and literature review[J]. J

Surg Case Rep, 2020, 2020(11): 451.

- [14] CONZO G, GAMBARDELLA C, CANDELA G, et al. Single center experience with laparoscopic adrenalectomy on a large clinical series [J]. BMC Surg, 2018, 18(1): 2.
- [15] BAN A, SATAPARA J, RATHOD K, et al. Teratoma involving adrenal gland: a case report and review of literature[J]. Indian J Radiol Imaging, 2019, 29(4): 472-476.
- [16] NIU M, LIU A, ZHAO Y, et al. Malignant transformation of a mature teratoma of the adrenal gland: a rare case report and literature review[J]. Medicine (Baltimore), 2017, 96(45): e8333.
- [17] 王亮, 张峰, 汤坤龙, 等. 肾上腺畸胎瘤五例临床分析[J]. 中华全科医师杂志, 2014, 13(11): 902-904.

(收稿日期: 2021-08-28 修回日期: 2021-12-22)