



· 个案报道 ·

# 原发性睾丸旁平滑肌肉瘤1例报告

王迪, 陈锋, 金艳玲, 孙志刚, 白珊珊, 崔晓楠, 张斌

大连医科大学附属第一医院肿瘤内科, 辽宁大连 116011

[关键词] 睾丸旁平滑肌肉瘤; 手术时机; 生殖影响; 病例分析; 精子活性

DOI: 10.19401/j.cnki.1007-3639.2020.09.013

中图分类号: R737.21 文献标志码: A 文章编号: 1007-3639(2020)09-0718-03

**One case report of primary paratesticular leiomyosarcoma** WANG Di, CHEN Feng, JIN Yanling, SUN Zhigang, BAI Shanshan, CUI Xiaonan, ZHANG Bin (Department of Oncology, the First Affiliated Hospital of Dalian Medical University, Dalian 116011, Liaoning Province, China)

Correspondence to: ZHANG Bin E-mail: zhangbin\_dlmu@163.com

[Key words] Paratesticular leiomyosarcoma; Surgical timing; Reproductive effects; Case analysis; Sperm activity

睾丸及睾丸旁肿瘤发病率较低, 仅占中国全部恶性肿瘤的1%~2%, 其中生殖细胞肿瘤占95%, 非生殖细胞肿瘤种类庞杂, 包括支持细胞瘤、间质细胞瘤、支持-间质细胞瘤、黑色素性神经外胚瘤、间皮瘤、黏液性囊腺瘤、腺癌、纤维上皮瘤及横纹肌肉瘤等。平滑肌肉瘤起源于间充质来源的未分化平滑肌细胞, 是罕见的软组织肿瘤。从未接受类固醇激素治疗或放射线照射的原发性睾丸平滑肌肉瘤是一种非常罕见的肿瘤, 大多位于睾丸旁, 起病于睾丸的平滑肌成分, 如血管或生精囊<sup>[1-3]</sup>。现将大连医科大学附属第一医院收治的1例睾丸旁平滑肌肉瘤病例介绍如下, 并探讨手术时机及对生殖的影响。

## 1 病例资料

患者为男性, 35岁, 8年前自觉左侧睾丸不适至大连医科大学附属第一医院就诊时查见睾丸肿物, 直径约1 cm, 因患者尚未结婚生育, 不影响日常生活, 故未手术治疗。后于2014年育有1子, 子体健, 发育正常。但左侧睾丸肿物逐年增大, 于2019年2月末再到大连医科大学附属第一医院就诊。查体发现左侧阴囊内肿物约8 cm, 质略硬, 伴坠胀感, 活动度可, 无压痛。血清甲胎蛋白(alpha-fetoprotein, AFP)和β-人绒毛膜促性腺激素(β-human chorionic gonadotropin, β-HCG)正常。超声检查显示: 左

侧睾丸明显增大, 内见一实性为主混合性肿物, 左右径约8.7 cm, 前后径约6.9 cm, 上下径约9.6 cm, 界限清晰, 内部回声明显不均, 右侧睾丸、附睾未见明显异常; 阴囊CT显示: 左测睾丸体积增大, 呈类圆形肿块影, 密度不均匀, CT值: 34~42 HU, 边界清晰, 直径约8.5 cm, 左侧附睾增大, 内管状结构增粗(图1)。腹膜后、双侧腹股沟区见小淋巴结影, 直径约5 mm。右侧阴囊、阴茎未见明显异常。患者出于经济考量拒绝接受正电子发射计算机断层显像(positron emission tomography/computed tomography, PET/CT)检查, 但随后行头部、胸部、腹部CT后未发现病灶。综上考虑, 对患者考虑根治性治疗, 于2019年3月初全麻下行根治性左侧睾丸切除术。术中逐层切开皮肤皮下, 切开腹外斜肌腱膜显露精索。分开提睾肌, 游离左精索, 于内环处钳夹阻断血运。将左侧睾丸自阴囊内向上推挤, 自切口投出体外。剥离睾丸鞘膜壁层与阴囊肉膜使睾丸充分游离。打开鞘膜可见肿瘤大小约8.5 cm, 侵及左侧睾丸, 未见正常附睾结构, 考虑来源于附睾可能性大。于内环处分束切断精索, 缝扎近端。

病理学检查结果: 送检睾丸, 肉眼可见大小为4.0 cm×3.6 cm×2.9 cm。睾丸表面鞘膜外见一灰白色肿物, 大小为8.0 cm×7.0 cm×6.5 cm。剖开后, 切面实性灰白色, 质地韧, 编织状外观, 局部略显暗黄色, 外附包膜, 与辜

基金项目: 辽宁省自然科学基金(LQ2017024)。

通信作者: 张斌 E-mail: zhangbin\_dlmu@163.com

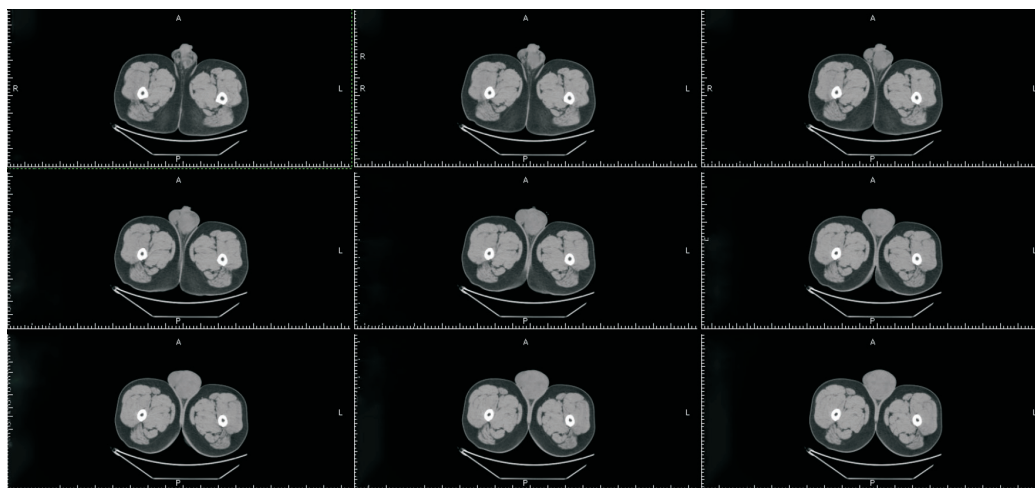


图1 患者阴囊的CT图像

Fig. 1 CT image of the patient's scrotum

丸分界尚清。上带附睾,大小为3.0 cm×0.8 cm×0.6 cm,剖面未见明显病变。上带精索,长13.0 cm,直径1.5 cm。光镜所见肿物由大量梭形细胞组成,细胞增生呈漩涡状排列,细胞核呈长杆状,细胞质丰富、细腻,细胞密度较大,可见核分裂,可见梗死。病理学诊断为左睾丸旁平滑肌肉瘤,大小为8.0 cm×7.0 cm×6.5 cm,睾丸及附睾未见肿瘤累及,精索断段未见肿瘤累及。免疫组织化学结果:actin (+), desmin (+), Ki-67 (50%+), PR (-), S-100 (-), SMA (+) (图2,低级别)。

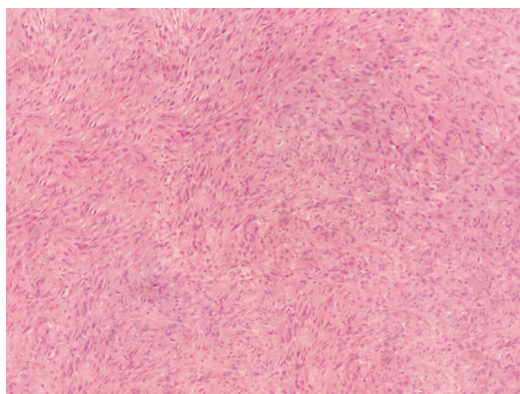


图2 患者睾丸旁平滑肌肉瘤免疫组织化学结果

Fig. 2 Immunohistochemical result of paratesticular leiomyosarcoma

## 2 讨论

原发性睾丸旁平滑肌肉瘤发病率极低,可通过3种途径播散:局部浸润、淋巴扩散和血行转移,其中多数经血行转移。1978年至今,中文报道的睾丸旁平滑肌肉瘤

病例仅有66例,年龄3~81岁,其中5例出现远处转移,12例死亡,但多数病例随访时间在1年内,后续情况尚未可知。本病例肿瘤来源附睾可能性大,原发性附睾肿瘤70%以上为良性,其中以腺样肿瘤最多,恶性肿瘤不足30%,附睾肿瘤可发生于任何年龄,但以20~50岁性功能活跃的青壮年居多<sup>[4]</sup>。对于有转移者,化疗使用多柔比星或异环磷酰胺通常是转移性软组织肉瘤患者的一线治疗方案<sup>[3, 5-7]</sup>,对吉西他滨或多西他赛的反应比对帕唑帕尼的反应更好<sup>[6, 8]</sup>,但一旦发生远处转移通常预后不佳<sup>[9-10]</sup>。放疗对精索肉瘤也是可行的<sup>[11-12]</sup>,耐受性良好,并且可能在疾病的局部控制方面发挥作用。这无疑为我们的治疗提供了更多思路。对于本病例,因尚未侵袭到睾丸被膜,影像学未发现转移病灶,属于临床I期,预后通常较好,对于I期病例,仍采用根治性手术治疗。术后患者恢复良好,综合考虑,未用任何药物辅助治疗,目前随访7个月无复发和转移。但仍要加强随访频率,定期做CT检测。

本例患者的特殊之处在于,发病时患者尚未结婚生育,占位效应不明显,患者担心此时穿刺和手术对日后生活的影响,且无病理学支持,故警惕性较低,决定随诊观察。患者结婚时肿物有所增大,但仍不影响日常生活,故正常生育,生育后肿物增大明显,病程达8年,已育有一健康子女,此时采用根治性睾丸切除术,避免了手术影响生育的忧虑,尽可能地达到“双赢”。但是,对于这一病例,我们仍存在一些疑问。首先是手术的契机,在患者生育后才手术是否合理?是否应该在病灶进一步发展之前进行切除?若是早期就采用根治性手术,对于患者来说,未

来面对婚姻和生育,是否会导致患者的不理解?其次,肿物对生殖系统又有何影响?初治时肿物尚小,但随着年龄的增加,肿物也逐渐增大,在初期难以取得病理学诊断的情况下,我们该如何判断肿物是否侵及睾丸?肿物即使没有侵及睾丸,对精子的生成及活化又是否有影响?精子的质量是否会降低?单侧的影响是否会影响到另一侧精子的生成和质量?最后,在术前为了避免肿物的转移和对生殖系统的破坏,应该采用何种干预措施?这些干预措施本身是否又会对生殖造成影响?尽管未转移的睾丸平滑肌肉瘤预后较好,但是术后除了定期复查随访外,是否还应该对患者进行其他干预,以预防微小病灶的复发和转移?这些问题谁都无法给出确切的答案,但中国人的传统观念是传宗接代,生育后立即给予手术是可行的,但是随之而来的是性功能的不确定性,是否会影响婚姻生活尚不可知,但如果一味拖延,出现转移而危及生命则得不偿失,所以手术的契机也无法确定。

肿瘤患者不仅需要医师的治疗,更需要在生活、心理上提供力所能及的帮助。特别是类似原发性睾丸旁平滑肌肉瘤这种罕见肿瘤,相关的治疗措施尚不完善,患者的生殖健康和心理健康也同样需要我们去关注,希望本病例报道能被广大同仁了解,共同关注这一问题。

#### [参 考 文 献]

- [1] KOMEYA M, SAHODA T, SUGIURA S, et al. Metastasis of primary testicular leiomyosarcoma to the retroperitoneal space [J]. *Indian J Urol*, 2012, 28(3): 343-346.
- [2] BAKHSHI G D, WANKHEDE K R, TAYADE M B, et al. High grade leiomyosarcoma of the testes [J]. *Clin Pract*, 2011, 1(4): e122.
- [3] GIRIDHAR V, KUMAR P B, NATARAJAN K, et al. Testicular leiomyosarcoma with metastasis [J]. *Indian J Urol*, 2011, 27(2): 278-279.
- [4] 李胜双, 王国贤, 周芳堃. 原发性附睾肿瘤32例 [J]. *临床泌尿外科杂志*, 2001, 16(7): 330-331.
- LI S S, WANG G X, ZHOU F K. Primary epididymal tumors: a report of 32 cases [J]. *J Clin Urol*, 2001, 16(7): 330-331.
- [5] SIRAJ F, SHARMA S, RAI C B, et al. Primary high grade testicular leiomyosarcoma: a rare malignancy in a young male [J]. *Turk J Urol*, 2018, 44(2): 178-181.
- [6] KIM J H, PARK H S, HEO S J, et al. Differences in the efficacies of pazopanib and gemcitabine/docetaxel as second-line treatments for metastatic soft tissue sarcoma [J]. *Oncology*, 2019, 96(2): 59-69.
- [7] MARTIN-LIBERAL J, PEREZ E, GARCIA D M X. Investigational therapies in phase II clinical trials for the treatment of soft tissue sarcoma [J]. *Expert Opin Investig Drugs*, 2019, 28(1): 39-50.
- [8] BERG C, VEDULA J, SUEUR A L, et al. A case of a primary intratesticular leiomyosarcoma with metastatic disease [J]. *Urology*, 2020, 136: e45-e47.
- [9] 李 海, 白培青, 谷春晓, 等. 睾丸平滑肌肉瘤一例 [J]. *中国肿瘤临床与康复*, 2007, 14(6): 505.
- LI H, BAI P Q, GU C X, et al. Leiomyosarcoma of testis: a case report [J]. *Chin J Clin Oncol Rehabil*, 2007, 14(6): 505.
- [10] 付伟金, 刘德云, 杨占斌. 原发性右侧附睾平滑肌肉瘤一例报告 [J]. *中华泌尿外科杂志*, 2016, 37(9): 676.
- FU W J, LIU D Y, YANG Z B. Primary epididymal leiomyosarcoma: a case report [J]. *Chin J Urol*, 2016, 37(9): 676.
- [11] CERDA T, MARTIN E, TRUC G, et al. Safety and efficacy of intensity-modulated radiotherapy in the management of spermatic cord sarcoma [J]. *Cancer Radiother*, 2017, 21(1): 16-20.
- [12] TAUE R, IZAKI H, NAKANISHI R, et al. Massive leiomyosarcoma of the spermatic cord [J]. *Hinyokika Kyo*, 2007, 53(7): 497-500.

(收稿日期: 2020-02-25 修回日期: 2020-04-13)