

PRIKAZI SLUČAJEVA

CASE REPORTS

Klinički centar Vojvodine, Novi Sad
Klinika za abdominalnu, endokrinu i transplantacionu hirurgiju¹
Centar za patologiju i histologiju²

Prikaz slučaja
Case report
UDK 616-006.2-089:611.94/95
DOI: 10.2298/MPNS1102089C

TORAKOABDOMINALNI TERATOM – RETKA LOKALIZACIJA

THORACOABDOMINAL TERATOMA – RARE LOCATION

Radovan CVIJANOVIĆ¹, Dejan IVANOV¹ i Mirjana ŽIVOJINOV²

Sažetak – Teratomi su tumori poreklom od germinativnih ćelija, a najčešće se javljaju na jajnicima. Lokalizacija teratoma u dve telesne duplje je retka. Bolesnica stara 51 godinu primljena je zbog naglo nastalih bolova u predelu leđa. Dijagnostikovana cistična formacija uz jasnu vizuelizaciju kapsule dimenzija 12,5x18 cm, smeštena paraaortalno, subdijafragmalno, retropankreatično i suprarenalno levo sa znacima kompresije pankreasa. Intraoperativno tumorska promena retroperitonealno zahvata gornji pol bubrega, a ne može se isključiti infiltracija okolnih struktura. Pošto se tumor kroz hijatus dijafragme pruža u grudni koš, urađena samo punkcija i fenestracija sa spoljašnjom drenažom. Na osnovu sadržaja postavljena dijagnoza teratoma. Bolesnica pripremljena, te se izvodi planirani operativni zahvat, pri čemu se uklanja slezina, levi bubreg i nadbubrežna žlezda, oslobađa aorta u celosti i nakon presecanja levoga krusa dijafragme odstranjuje deo promene iz grudnoga koša. Bolesnica kontrolisana, urednog nalaza. Prikazana je bolesnica s torakoabdominalnim teratomom koji je u dva akta odstranjen. Postoperativni tok uredan.

Ključne reči: Teratoma; Grudni koš; Abdomen; Germinativne ćelije; Žena; Srednjih godina; Operativne hirurške procedure

Uvod

Teratomi su tumori poreklom od germinativnih ćelija. Podeljeni su na zrele (teratoma maturus), nezrele (teratoma immaturus) i na monodermalne specijalizovane teratome. Većina zrelih teratoma je cistična i klinički naziv je dermoidna cista. U većini slučajeva reč je o benignim cističnim teratomima lokalizovanim na jajniku u 32,6%, dok su čak u 8,2% slučajeva bilateralni [1]. Mogu biti lokalizovani presakralno-retrorektalno [2], retroperitonealno [3], medijastinalno [4], ali i na drugim mestima. Najčešće se dijagnostikuju u uzrastu između 15 i 25 godina. Kod dece i u mlađem uzrastu teratomi su obično maligni. Kod odraslih je veći procenat zrelih teratoma, a u 12,5% do 25,8% [5,6] teratomi su nezreli, to jest maligni.

Prikaz slučaja

Bolesnica stara 51 godinu primljena je zbog naglo nastalih jakih bolova u predelu leđa. Laboratorijski nalazi krvi i urina su u granicama referentnih vrednosti. Na osnovu ultrazvučnog pregleda gornjeg abdomena nađena je iznad gornjeg pola levog bubrega okruglasta solidna struktura, jasno ograničena od okoline, dimenzija 78x70 mm, te se postavlja radna dijagnoza tumora nadbubrežne žlezde. Pacijentkinja odbija dalju dijagnostiku i otpušta se kući. Tokom šest meseci, tegobe se pogoršavaju, te se pacientkinja ponovno javlja žaleći se na izraženije bolove u leđima, uz sada otežan i akt defekacije. Na ponovljenom ultrazvučnom pregledu nađena je u projekciji leve nadbubrežne žlezde, subdi-

jafragmalno, masivna tumorska formacija promera 85 mm. Urađena je kompjuterizovana tomografija (CT) i otkrivena cistična formacija uz jasnu vizuelizaciju kapsule veličine 12,5 x 18 cm, smeštena paraaortalno, subdijafragmalno, retropankreatično i suprarenalno s leve strane sa znacima kompresije, kao i dislokacije pankreasa. Promena deluje septirano, ispunjena bistrim sadržajem izuzev na dnu, gde se evidentira sadržaj koji je gušći. Od ranijih bolesti pacientkinja navodi apendektomiju sa 10 godina života, a sa 40 godina je operisala benignu cistu na desnom jajniku, za koju nema patohistoloških podataka.

Operacija je izvedena u opštoj endotrahealnoj anesteziji kroz središnju ksifopubičnu laparotomiju. Tokom operacije nađena je tumorska promena smeštena u levom retroperitoneumu, iznad levog bubrega, koja pomera sve okolne strukture, a ne može se sa sigurnošću reći da li ih i infiltruje. Tumor prolazi kroz hijatus dijafragme i u levu polovinu grudnog koša. Tumorska promena deluje cistično, te je urađena punkcija, a potom i fenestracija promene i dobijen je gust, beličast sadržaj koji liči na gnoj s dlakama koje plivaju u njemu (**Slika 1**). Sav sadržaj ciste se isprazni, a ona ispere betadinom i drenira. S obzirom na to da intraoperativni nalaz nije odgovarao preoperativnom, te zbog nemogućnosti da se intraoperativno proceni stanje okolnih organa i stepen radikaliteta operacije, ona je završena eksploracijom. Postoperativni tok je protekao uredno i pacientkinja je otpuštena na dalje ambulantno ispitivanje.

Na kontrolnom CT pregledu abdomena i toraksa identifikovana je tumorska promena dimenzija 12 x

Skraćenice

CT – kompjuterizovana tomografija
 AFP – alfa feto protein



Slika 1. Otvoreni teratom – dlake u sadržaju ciste
Fig. 1. Opened teratoma – hairs inside the cyst

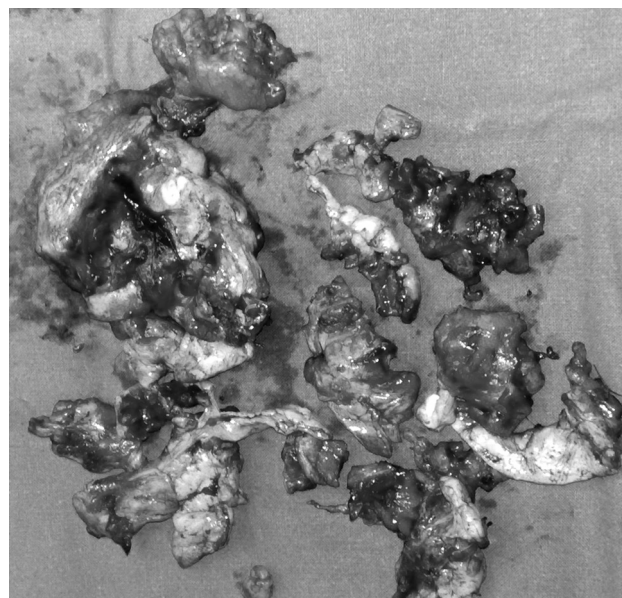
6 cm, koja je u bliskom kontaktu s levom renalnom venom, aortom i koja se pruža supradijafragmalno s leve strane. Nalaz intravenske urografije je uredan, kao i vrednosti svih laboratorijskih testova, te se indikuje ponovni operativni zahvat.

Tri meseca posle prve operacije sledi nov operativni zahvat. Tokom operacije mobilisana je leva fleksura kolona, odstranjena slezina i pokušano je oslobađanje gornjeg pola levog bubrega i njegove vaskularne peteljke od tumorske promene. Međutim, leva renalna vena i leva nadbubrežna žlezda nalaze se praktično u zidu ciste, bez mogućnosti njihovog oslobađanja te je urađena leva nefrektomija i supraadrenalektomija. Cistična tumorska promena svojim zidom intimno naleže na



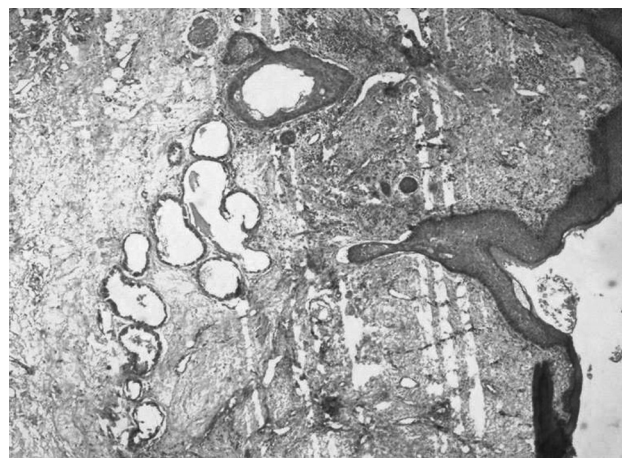
Slika 2. Zid teratoma na aorti
Fig. 2. Teratoma wall on the aorta

prednji zid aorte i duž njega se pruža kranijalno kroz hijatus dijafragme u grudni koš ne zahvatajući jednjak, koji se nalazi ispred, i pleuru od koje se lako oslobodi. Cista nije mogla biti izvađena u celini, te se ona otvara i uklanja u delovima, a iz nje se vade sitne kosti. U delovima se skine cistična promena i s prednjeg zida aorte (Slika 2). Svi delovi cistične tumorske promene poslati su na patohistološko ispitivanje (Slika 3).



Slika 3. Delovi teratoma
Fig. 3. Parts of teratoma

Na osnovu patohistoške dijagnoze utvrđen je zreli teratom s morfološkim osobinama kože, uključujući prisustvo adneksa, te je konačna dijagnoza dermoidna cista (Slika 4).



Slika 4. Epiderm, sa lojnim i znojnim žlezdama (HE bojenje)
Fig. 4. Epidermis, with sweat and sebaceous glands (HE staining)

U protekle dve godine bolesnica je redovno kontrolisana i pomoću CT pregleda abdomena nije utvrđen recidiv osnovne bolesti.

Diskusija

Dermoidne ciste, to jest teratomi javljaju se u 28–32,6% [1,7] kao primarni dobroćudni tumori na jajnicima i testisima. Druge lokalizacije, kao i njihov rast mogu biti različiti, uključujući područje sakralne kosti, retroperitoneuma, međijastinuma, vrata, poda usta [2–5,8–12]. Mogu biti građeni od jednog germinativnog-klicinog listića – *monodermalni*, od dva (ektoderm i mezoderm) – *bidermalni*, ili od sva tri (ektoderm, endoderm i mezoderm) – *tridermom-teratom*. Ove tumorske formacije retko bivaju u obliku solidne forme, a češće se javljaju kao cistične [2,3,8]. Unutrašnjost kod monodermalnih cista poreklom od ektoderma obložena je kožom, te se zbog toga ovakve ciste nazivaju i dermoidnim cistama. Šupljina im je ispunjena produktima lojnih i znojnih žlezda, dlakama, deskvamiranim ćelijama epitela i ponekad zubima. Mezodermalna tkiva, kao što su masno tkivo, hrskavica, kost i glatko mišićno tkivo, manje su učestala od endodermalnih struktura kao što su respiratorni i intestinalni epitel.

Biološko ponašanje teratoma često je nepredvidivo. U najvećem broju slučajeva teratomi su benigni, ali je moguća i njihova maligna transformacija u 6,8% do 25,8% slučajeva [5,6,13,14]. Ovaj procenat se povećava sa životnim dobom. Benigni teratomi se u zavisnosti od procenta nediferentovanih ćelija dele na zrele, gde nediferentovanih ćelija ima do 10%, i na nezrele, gde je prisustvo nediferentovanih ćelija više od 10% [3]. Nezreli češće maligno transformišu i imaju agresivniji klinički tok nego ostali teratomi [13]. Zbog predominacije ektodermalnih elemenata u dermoidnoj cisti, najčešći je planocelularni karcinom, mada se mogu naći i različite vrste adenokarcinoma i sarkoma [14].

Svi zreli cistični teratomi potencijalno su maligni i trebalo bi ih hirurški ukloniti [10].

Germinativne ćelije se mogu diferencirati u bilo koja tkiva koja se nalaze u telu, pa su zato s teratomima povezani razni tumorski markeri. Alfa fetoprotein (AFP) najčešći je marker i služi za praćenje i prognozu nakon hirurškog zahvata [3]. Istraživanja su pokazala da teratom ima dobru prognozu ako se nivo AFP normalizuje za 8–12 nedelja posle hirurškog zahvata.

Dijagnostika teratoma nije jednostavna jer se veoma često dijagnostikuju kao ciste. Na osnovu ultrasonografije se dobija mnogo podataka o promeni, pogotovo ukoliko se u njoj nalaze koštane strukture, dok je CT dijagnostika neophodna radi procene proširenosti – infiltracije okolnih vitalnih struktura i resektabilnosti promene [4]. Postoperativno je neophodno ponoviti nalaz da bi se isključila mogućnost zaostajanja delova tumora koji će dovesti do recidiva.

Lečenje teratoma je hirurško zbog visokog procenta mogućnosti njihove maligne alteracije. Promene je neophodno u celosti ukloniti zbog mogućih recidiva. Kao dodatak hirurškom lečenju primenjuje se hemioterapija i zračna terapija [10,15].

Zaključak

Dermoidnim cistama – teratomima treba posvetiti punu pažnju u pogledu dijagnostike i plana operacije. Posebnu pažnju iziskuje intraoperativno uklanjanje promene u celosti zbog moguće maligne transformacije, ali i pojave postoperativnog recidiva. Po svojoj lokaciji i zahvatanju okolnih struktura, teratom kod naše bolesnice iziskivao je izvođenje splenektomije, supraadrenalektomije i nefrektomije.

Literatura

- Ulbricht T. Germ cell tumors of the gonads: a selective review emphasizing problems in differential diagnosis, newly appreciated, and controversial issues. *Mod Pathol* 2005;18:61-79.
- Kumar B, Kumar M, Sen R, Anchal N. Mature solid teratoma of the report of a case. *Surg Today* 2008;38:1133-6.
- Gatcombe H, Assikis V, Kooby D, Johnstone P. Primary retroperitoneal teratomas: a review of the literature. *J Surg Oncol* 2004;86:107-13.
- Duwe B, Sberman D, Musani A. Tumors of the mediastinum. *Chest* 2005;128(4):2893-909.
- Wang M, Chen A. Primary retroperitoneal teratoma. *Acta Obstet Gynecol Scand* 2000;79:707-8.
- Michel M, Pratt J. Anterior mediastinal nonseminomatous germ cell tumor with malignant transformation: a case report. *Current Surg* 2004;6:576-9.
- Molnar E, Sloboda L, Fenjveši A, Živković S. Hormonalno aktivni tumori jajnika na tridesetogodišnjem materijalu (1965 – 1994). *Med Pregl* 1999;52(6-7-8):241-5.
- Vučković N, Vučković D. Cistični teratom vrata. *Med Pregl* 1991;44(1-2):39-40.
- Knežević M, Cvetinović M, Jović N, Mirković Z. Velike dermoidne ciste poda usta. *Med Pregl* 1993;46(5-6):185-7.
- Ohno Y, Kanematsu T. An endodermal sinus tumor arising from a mature cystic teratoma in the retroperitoneum in a child: is a mature teratoma a premalignant condition? *Hum Pathol* 1998;29:1167-9.
- Göbel U, Schneider D, Calaminus G, Haas R, Schmidt P, Harms D. Germ-cell tumors in childhood and adolescence. *Ann Oncol* 2000;11:263-71.
- Čolović R, Grubor N, Radak V, Micev M, Čolović N. Limfoepitelna cista pankreasa. *Srp Arh Celok Lek* 2006;134:64-6.
- Kido A, Togashi K, Konishi I, Kataoka M, Koyama T, Ueda H, et al. Dermoid cysts of the ovary with malignant transformation: MR appearance. *AJR* 1999;172:445-9.
- Krnojelac D, Hadžić B, Čurčin N, Đolai M, Bogdanović G. Maligna transformacija štitastog tkiva u dermoidnoj cisti jajnika: prikaz slučaja. *Med Pregl* 1999;52(9-10):395-8.
- Einthorn L. Chemotherapeutic and surgical strategies for germ cell tumors. *Chest Surg Clin North Am* 2002;12:695-706.

Summary

Introduction

Teratomas are tumours derived from pluripotent germ cells. They appear most frequently on ovaries. However, other locations are also possible: testicles, retroperitoneum, stomach, neck, and bottom of the mouth cavity. It is not very common to find teratomas in two different body cavities.

Case report

A 51-year-old patient visited her doctor complaining of an intensive pain which suddenly appeared in her low back. The computed tomography scan of the abdomen was performed, which revealed cystic formation, 12.5 x 18 cm in size, with remarkable capsule visualization. It had paraaortic, subdiaphragmatic, retropancreatic and suprarenal left localisation with signs of compression and pancreatic dislocation. The cystic formation had a septated appearance filled with clear fluid in all its parts except at the bottom, where it was dense. The intra-operative finding was left retroperitoneal mass placed above the left kidney, dislo-

cating surrounding structures and their infiltration could not be excluded for sure. A tumour mass passed through the diaphragmatic hiatus and continued in the left thoracic space. The cyst was only drained and the fenestration was performed. Three months later, the second operation was performed - splenectomy, left suprarenaladenectomy, left nephrectomy, aortic deliberalisation, the left diaphragmatic crus was opened and tumour mass was completely removed from the thoracic space. The histological examination showed mature teratoma with morphological characterisations of the skin, so the definite diagnosis was dermoid cyst.

Conclusion

The patient presented with thoracoabdominal teratoma. Although without malignant transformation, the teratoma required splenectomy, supraadrenalectomy and nefrectomy due to its position and size.

Key words: Teratoma; Thorax; Abdomen; Germ Cells; Female; Middle Aged; Surgical Procedures, Operative

Rad je primljen 24. VI 2010.

Prihvaćen za štampu 12. VII 2010.

BIBLID.0025-8105:(2011):LXIV:1-2:89-92.