

A here cysticus elváltozásai csecsemőkorban – négy eset ismertetése

Balogh Dorottya dr.¹ ■ Biró Ede dr.¹ ■ Garai Gábor dr.²
Mohay Gabriella dr.³ ■ Semjén Dávid dr.⁴ ■ Vástyán Attila dr.¹

¹Pécsi Tudományegyetem, Általános Orvostudományi Kar, Klinikai Központ, Gyermekgyógyászati Klinika, Manuális Tanszék, Pécs

²Heim Pál Országos Gyermekgyógyászati Intézet, I. Gyermek Sebészeti és Traumatológiai Osztály, Budapest

³Pécsi Tudományegyetem, Általános Orvostudományi Kar, Klinikai Központ, Orvosi Képpalkotó Klinika, Pécs

⁴Pécsi Tudományegyetem, Általános Orvostudományi Kar, Klinikai Központ, Pathológiai Intézet, Pécs

Csecsemőkorban a here cysticus elváltozásai ritka entitásnak számítanak. Az angol nyelvű szakirodalom kevés hasonló esetről számol be, a 2000-es évek elejéig publikált esetek harmadában orchiectomia történt. A hisztológia a leggyakrabban teratomát, a legritkábban egyszerű cystát igazol. Mindkét elváltozás jóindulatú, egyéves kor alatt a leggyakoribb. Közleményünkkel arra szeretnénk felhívni a figyelmet, hogy ezen esetek kezelése során törekedni kell a here megtartására. A Pécsi Tudományegyetem Klinikai Központ Gyermekgyógyászati Klinikájának Manuális Tanszékén és a Heim Pál Országos Gyermekgyógyászati Intézet I. Gyermek Sebészeti és Traumatológiai Osztályán 2015 és 2018 között 4 csecsemőben észleltük a here cysticus elváltozását. A betegek kórtörténeti adatainak részletes retrospektív elemzését és a szakirodalom áttekintését végeztük. Mind a 4 alkalommal a csecsemő fél éves kora előtt észleltek egyoldali, panaszokat nem okozó herezacskófél-megnagyobbodást. Az ultrahangvizsgálat 3 esetben szoliter cysticus képletet talált. 1 esetben szeptált, sűrű folyadékkal telt cysticus képletet véleményezett, számottevő hereállomány nem mutatkozott. Ennél a betegnél mágnesesrezonancia-vizsgálat is készült, mely teratoma lehetőségét vetette fel. A feltárás során mindegyik csecsemőben cysticus képletet találtunk. 3 betegnél hereszövet-megtartó műtétet (enucleatiót) végeztünk. 1 esetben az érdemben megartható hereszövet hiánya, valamint teratoma gyanúja miatt orchiectomia történt. A kórszövettan két esetben egyszerű cystát, két esetben praepubertalis teratomát igazolt, melyek jóindulatú elváltozások. A here cysticus elváltozásai csecsemőkorban döntő többségben benignusak. Az egyszerű cysta és a praepubertalis teratoma egyaránt jóindulatú elváltozás, malignus transzformációra nem hajlamosak. A képalkotó eljárások közül az ultrahangvizsgálat elegendő lehet a kezelési terv felállításához. Mindig törekedni kell a here megtartására, a lehető legtöbb hereszövet megkímélésére. Kórszövettani vizsgálat nélkül a here eltávolítása ebben az életkorban nem javasolt.

Orv Hetil. 2020; 161(48): 2043–2048.

Kulcsszavak: here, cysta, teratoma, csecsemő, heremegtartó kezelés

Cystic lesions of the testis in infancy – case series of four patients

Cystic lesions of the testis are rare in infancy. Few similar case-series were published in the English literature. Orchiectomy was reported in one-third of the cases until the early 2000s. Histology mostly confirms teratomas, rarely simple cysts. Both are benign and most common under the age of one year. Our aim is to draw attention to the importance of testicular sparing surgery (enucleatio), whenever possible. At the Medical Centre of the Department of Pediatrics of the Division of Paediatric Surgery, Pécs and at the Department of Pediatric Surgery and Traumatology of the Heim Pal Children's Hospital, Budapest, four cystic testicular lesions were treated in infancy between 2015 and 2018. We performed retrospective analysis and reviewed relevant literature. Our patients were under six months and an unilateral, painless scrotal enlargement appeared. Ultrasound described cystic lesion in the testis in three cases. In one case a septated, echogenic, liquid-filled cystic lesion was detected, with no significant amount of testicular tissue. Magnetic resonance imaging scan of this patient predicted the diagnosis of teratoma. During the surgeries, cystic lesions were found in all cases. Enucleatio was performed in three patients. Orchiectomy was carried out once due to the suspicion of teratoma and the lack of salvageable testicular tissue. Histopathology confirmed simple cysts in two babies and prepubertal teratomas in the others. Testicular cystic lesions are predominantly benign in infancy. Simple cysts and prepubertal teratomas are benign, not prone to malignant transformation. Ultrasound is reliable for preoperative planning. Testicular tissue sparing surgery must be considered and without histopathology orchiectomy should not be performed.

Keywords: testis, cystic lesion, teratoma, infant, testicular sparing surgery

Balogh D, Biró E, Garai G, Mohay G, Semjén D, Vástyán A. [Cystic lesions of the testis in infancy – case series of four patients]. *Orv Hetil.* 2020; 161(48): 2043–2048.

(Beérkezett: 2020. június 9.; elfogadva: 2020. július 4.)

Rövidítések

AFP = alfa-fetoprotein; béta-hCG = a humán choriogonadotropin béta-alegysége; MR = (magnetic resonance) mágneses rezonancia; PTE KK = Pécsi Tudományegyetem, Klinikai Központ; UH = ultrahang

Csecsemőkorban a here cysticus elváltozásai ritka entitásnak számítanak. Az angol nyelvű szakirodalom kevés hasonló esetről számol be, a 2000-es évek elejéig publikált esetek harmadában orchietomia történt [1].

Gyermekkorban a here cysticus elváltozásai a legtöbb esetben jóindulatúak. A hisztológia a leggyakrabban teratomát, epidermalis cystát, a tunica albuginea cystáját és a legritkábban egyszerű herecystát igazol. Az egyszerű herecysta a scrotalis cysták között a legritkábban előforduló cysta, beleértve a mellékhere, a funiculus, a tunica vaginalis és a tunica albuginea cystáit [2]. A here tumoros elváltozásai közül praepubertalis korban a teratoma az egyik leggyakoribb elváltozás [3, 4].

Egyszerű herecystáról 1966-ban született először publikáció, abban a betegben teratoma gyanúja miatt orchietomiát végeztek [5]. Csecsemőkorban a teratoma praepubertalis típusa van jelen, ez minden esetben benignus elváltozás [6].

A PTE KK Gyermekgyógyászati Klinikájának Manuális Tanszékén, illetve a Heim Pál Országos Gyermekgyógyászati Intézet I. Gyermek Sebészeti és Traumatológiai Osztályán 2015 és 2018 között 4 különböző, mégis hasonló esetet észleltünk, melyek diagnosztikájukban, terápiájukban részben eltérnek egymástól, így egy spektrumként is értékelhetők. Esetbemutatusaink célja a here-megtartó kezelés propagálása.

Esetismertetések

Első beteg

A csecsemő születésekor észlelték bal oldalon a herezacskófél megnagyobbodását, mely növekedést mutatott, de panaszokat nem okozott. A herezacskó ultrahang (UH)-vizsgálata során egy 24 × 16 mm-es, tiszta bennékű, vékony falú cysticus képlet volt megfigyelhető a bal here állományában; a jobb oldalon kóros nem igazolódott. Az elváltozás méretére és helyzetére való tekintettel scrotalis feltárást követően enucleatiót végeztünk az ép hereszövet megkímélésével. A szövettani vizsgálat a testicularis teratoma praepubertalis típusát igazolta. A nyomon követés

során 1, 3 és 12 hónappal a műtét után történt kontroll-UH-vizsgálat. Minden esetben normális nagyságú, homogén szerkezetű és jó vérellátású volt az operált here.

Második beteg

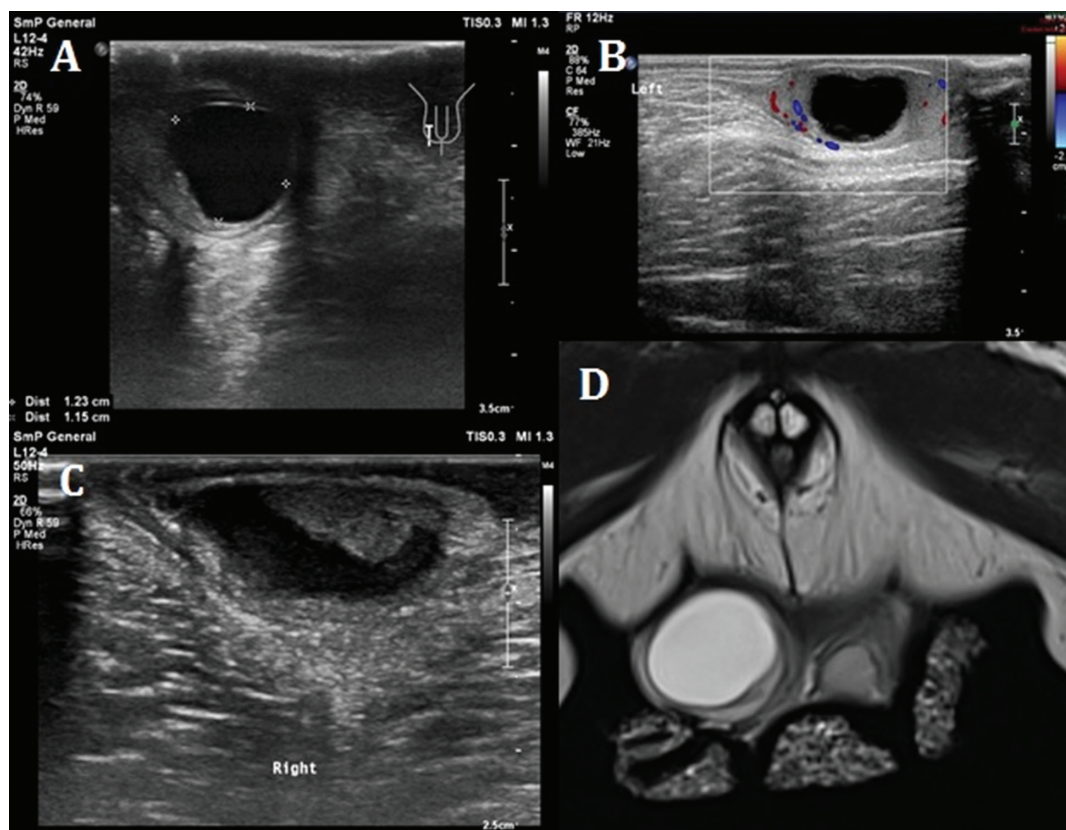
A csecsemő 5 hónapos korában észlelték bal oldalon a herezacskófél megnagyobbodását, amely növekedő tendenciát mutatott, de panaszokat nem okozott. UH-vizsgálat során elsőként 12 × 8 × 8 mm-es, később 13 × 10 × 12 mm-es cysticus képlet ábrázolódott a bal here felső harmadában; a jobb oldalon eltérés nem mutatkozott (1/B ábra). Az elváltozás méretére és helyzetére való tekintettel scrotalis feltárást követően enucleatiót végeztünk, az ép hereszövet megkímélésével (2/A ábra). A kórszövettani vizsgálat aspecifikus herecystát véleményezett. A műtétet követő másfél éves nyomon követés alatt a fizikális vizsgálatok során mindkét herét megegyező nagyságúnak, normál tapintatúnak véleményezték.

Harmadik beteg

A csecsemő 4 hónapos korában észlelték a jobb oldalon herezacskófél-duzzanatot, amely panaszokat nem okozott. UH-vizsgálat során egy 25 × 17 × 20 mm-es, szeptált, sűrű folyadékkal telt cysticus képlet mutatkozott, amely a jobb here teljes egészét elfoglalta; a bal oldalon ép viszonyok ábrázolódtak (1/C ábra). A diagnózis további pontosítása céljából hasi-kismedencei kontrasztanyag MR-vizsgálat készült, amely az elváltozást teratomának véleményezte (1/D ábra). Onkoteam-megbeszélést követően, a képkalkító eljárásokra alapozva, inguinalis feltárást végeztünk. Mivel az intraoperatív lelet alapján érdemben megtartható hereszövetet nem találtunk, orchietomiát (típusosan lágyéktáji feltárásból a here, a mellékhere, illetve a teljes funiculus eltávolítása) végeztünk. A kórszövettani vizsgálat benignus epithelialis cystát igazolt (3/A és 3/B ábra). A nyomon követés során a bal oldali here kompenzatorikus növekedését észleljük, kisiskolás korban tervezzük a protézis első lépésének elvégzését.

Negyedik beteg

Hat hónapos csecsemőnél észlelték jobb oldali, panaszokat nem okozó herezacskófél-duzzanatot, amely a méretét nem változtatta. UH-vizsgálat során egy 13 × 11 mm-es,



1. ábra

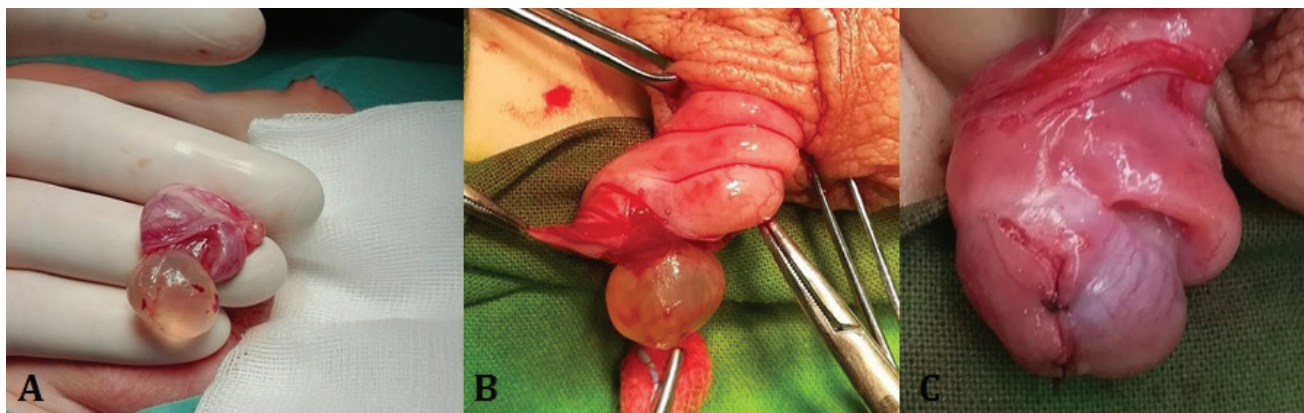
Képkalkító vizsgálatok

A) A 4. beteg ultrahangfelvétele adja a legrepresentatívabb képet arról, hogy az UH-vizsgálat során benignus, praepubertalis teratoma is ábrázolódhat egyszerű cystaként. B) A 2. beteg UH-vizsgálata során a Doppler-vizsgálat a cysticus elváltozás mellett keringést mutató hereszövet jelenlétét igazolja. C) A 3. betegünk UH-vizsgálata során sűrű bennéki szeptált képletet láttunk, mely felvetette a teratoma lehetőségét. D) A 3. betegünkön végzett MR-vizsgálat teratomát véleményezett

MR = mágneses rezonancia; UH = ultrahang

a falában néhol meszesedést mutató cysticus képlet ábrázolódott a jobb here alsó pólusában; a bal oldalon kóros nem mutatkozott (1/A ábra). Scrotalis feltárást követően enucleatiót végeztünk az ép hereszövet megtartásával (2/B és 2/C ábra). Perioperatíván AFP- és béta-hCG-szintet vizsgáltunk. Az AFP-szint minimális emelkedést

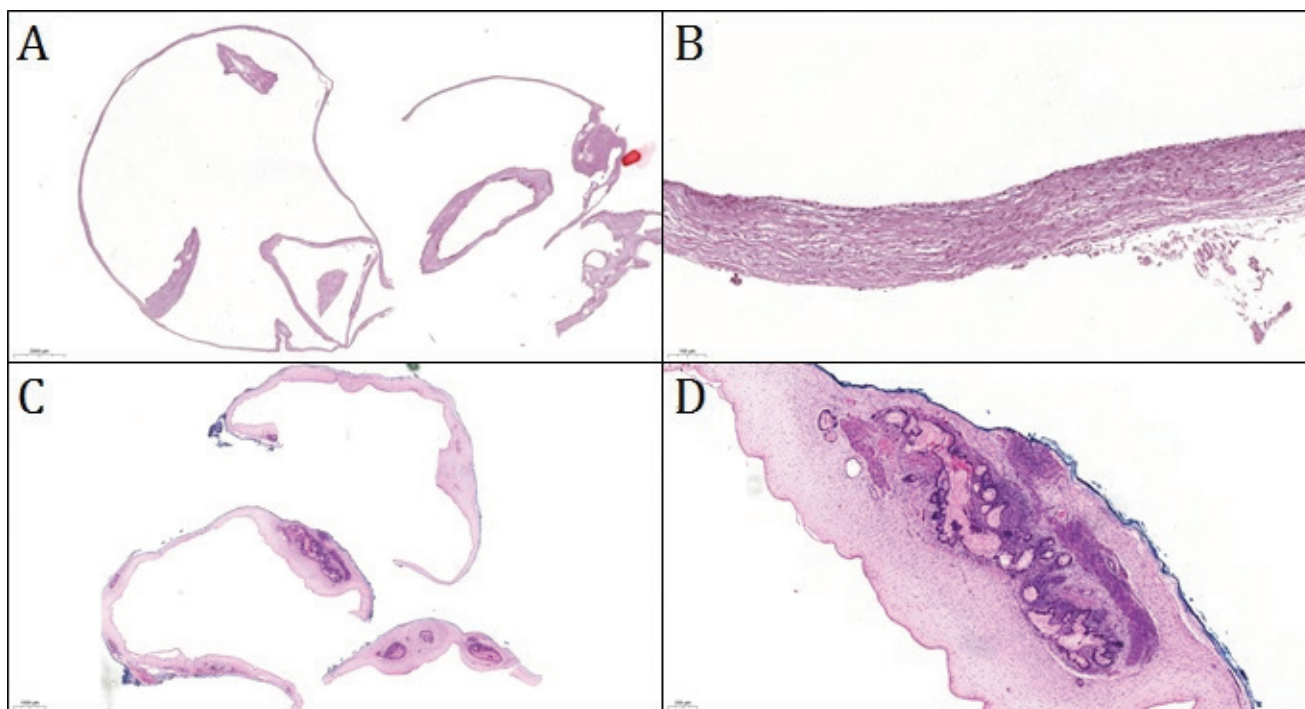
mutatott, a béta-hCG a normáltartományban volt. A kórszövetteni vizsgálat praepubertalis teratomát igazolt (3/C és 3/D ábra). Tekintettel erre, a műtétet követő második és ötödik hónapban kontroll-UH- és -laborvizsgálatokat végeztünk. Az UH-vizsgálat mindkét alkalommal normál méretű és szerkezetű heréket írt le. A la-



2. ábra

Intraoperatív képek

A) A 2. betegünk intraoperatív makroszkópos képe a többihez hasonló volt, a kórszövetten aspecifikus herecystát írt le. B) A 4. betegünk intraoperatív makroszkópos képe. Jól látható a hasonlóság a 2/A ábrával összehasonlítva. Ebben az esetben jóindulatú teratoma volt a kórszövetteni diagnózis. C) A 4. betegünkről készült intraoperatív felvétel az enucleatiót követően



3. ábra

Kórszöveti metszetek

A) A 3. betegünk mikroszkópos képe, melynek alapján epithelialis cysta igazolódott: átmetszetben tágult cysticus területek mutatkoznak. B) A 3/A ábra felnagyítva: heges falú, köbhámmal bélelt tömlőborítás látható. C) A 4. betegünk mikroszkópos képe, melynek alapján praepubertalis teratoma igazolódott: átnézeti képen cysticus ürök azonosíthatók. D) A 3/C ábra felnagyítva: középen organoid intestinalis fal struktúrával rendelkező praepubertalis típusú teratoma figyelhető meg

borvizsgálatok során AFP- és béta-hCG-szintet kontrolláltunk. Az első kontrollvizsgálaton az AFP az előző értékhez képest csökkent. Az öt hónapos kontrollvizsgálaton már mindkét érték a normáltartományban volt mérhető.

Megbeszélés

Négy év során 4 csecsemőnél észleltük egyéves kor alatt a here cysticus elváltozásait. Az angol irodalom felveti egyes esetekben az elváltozás congenitalis eredetét a ko-

rai észlelés miatt [5, 7], ezt a mi tapasztalataink is támogatják (lásd első beteg). Az oldaliság tekintetében az irodalom jobb oldali dominanciáról számol be [1, 7].

A here cysticus elváltozásai csecsemőkorban egy spektrumot fednek le, a kórszöveti vizsgálatok során számos különböző entitás igazolható. Ahogy az 1. táblázatban látható, az általunk észlelt 4 csecsemőben az első vizsgálat során hasonlóan tűnő laesiókat találtunk, de végül különböző diagnózisok születtek. A here praepubertalis cysticus elváltozásai döntően jóindulatúak [4]. Az egyszerű cysták és a praepubertalis teratomák is jóindulatúak, malignizálódásra nem hajlamosak.

1. táblázat | Betegünk klinikai adatainak összefoglalása

	Első beteg	Második beteg	Harmadik beteg	Negyedik beteg
Első észlelés	Születéskor	5 hónapos korban	4 hónapos korban	6 hónapos korban
Panaszok	Nincsenek	Nincsenek	Nincsenek	Nincsenek
Oldaliság	Bal	Bal	Jobb	Jobb
Képkalkotó	UH	UH	UH, MR	UH
Diagnózis képkalkotóval	Simplex cysta	Simplex cysta	Teratoma	Simplex cysta
Makroszkópos lelet	Simplex cysta	Simplex cysta	Simplex cysta	Simplex cysta
Mikroszkópos lelet	Testicularis teratoma, praepubertalis típus	Aspecifikus cysta	Epithelialis cysta	Praepubertalis teratoma
Műtéti megoldás	Enucleatio	Enucleatio	Orchiectomia	Enucleatio
Ellenoldali here	Érintetlen	Érintetlen	Érintetlen	Érintetlen

MR = mágneses rezonancia; UH = ultrahang

A betegeinkben végzett UH-vizsgálataink során 3 esetben egyszerű cysta ábrázolódott, körülötte működő hereszövevvel. 1 esetben szeptált, sűrű bennéki cysta volt látható. Emiatt MR-vizsgálat történt, amely teratomát véleményezett. A műtét után végzett kórszövet-tani vizsgálat ezt az elváltozást is egyszerű cystának találta.

Az UH-vizsgálat elegendő lehet a kezelési terv felállításához, ugyanakkor a pontos diagnózishoz nem mindig elegendő. A multiparametrikus UH-vizsgálat, elasztográfiás módszerrel, talán még megbízhatóbb diagnózissal szolgálna a here elváltozásainak esetében [8, 9], de ez a módszer nem áll rendelkezésünkre. Tapasztalataink alapján (lásd harmadik beteg) a magasabb rendű képkalkotó vizsgálat (MR) elvégzése sem volt elegendő a pontos diagnózis felállításához, a terápiás tervet viszont nem módosította, csak annak megtervezésében volt segítségünkre. Ezek alapján nem tartjuk szükségesnek magasabb rendű képkalkotó bevonását a diagnosztikába. Pontos diagnózis csak kórszövet-tani vizsgálat után állítható fel.

Egyes szerzők tapasztalatai alapján a here cysticus elváltozásai képesek olyan mértékig növekedni, amíg teljesen elfoglalják a hereparenchyma helyét, így mielőbbi eltávolításuk javasolt [7].

Az irodalmi adatok alapján, feltételezett jóindulatú elváltozás esetében is, a legtöbb esetben inguinalis feltárást követően, a funiculust lefogva történt meg az enucleatio. Erre a potenciális tumorszóródás megelőzésének érdekében került sor [10]. A publikált esetek többségében intraoperatív fagyasztott metszeteket küldtek szövettani vizsgálatra [4, 10]. A mi betegeink közül 3 csecsemőnél, tekintettel a feltételezett jóindulatú elváltozásra, scrotalis feltárást követő enucleatiót végeztünk a funiculus megkímélése és a jobb esztétikai eredmény érdekében.

A műtétek alatt észlelt makroszkópos kép mind a 4 esetben hasonló volt, egyszerű cystának imponáltak az elváltozások. 3 csecsemőben a cysticus elváltozás jól elkülöníthető volt a here szövetétől, a here megkímélésevel el lehetett távolítani *in toto*. 1 betegben az ép hereszövet hiánya miatt orchiectomiát végeztünk.

Simplex cysta esetén először 1988-ban számoltak be a hereszövet megtartásával járó műtétről [2]. A későbbi publikációk ugyancsak hereszövet-megtartó kezelést ajánlanak simplex cysta esetén [1]. Amennyiben a teratoma lehetősége felmerült, az irodalom az 1990-es évekig konzekvensen orchiectomiát javasolt [11–15]. Az 1990-es évektől kezdve jelentek meg közlemények a heremegtartó műtétek alkalmazásáról, illetve javaslatáról [3, 4, 10, 16–19].

Az enucleatio elégséges teratoma esetében is, mivel malignizálódásról, illetve metasztázáló betegség lehetőségéről ebben az életkorban, praepubertalis teratoma esetén, irodalmi adat alapján sem beszélhetünk [3, 10, 18]. Mindezek és saját tapasztalataink alapján mi mindenképpen az ép hereszövet megtartását javasoljuk egyszerű cysta és praepubertalis teratoma esetén, amennyiben az technikailag lehetséges. A műtétek utáni nyomon követésről megoszlanak a vélemények. Betegeinknél

egyéni mérlegelés alapján zajlott a nyomon követés, melynek során kórosat nem észleltünk. Egy nagyobb esetszámú tanulmány tapasztalatai alapján hosszas nyomon követés során sem észlelték a teratoma kiújulását az azonos vagy az ellenoldali herében, sem áttét kialakulását [4].

Anyagi támogatás: A közlemény megírása és a kapcsolódó kutatómunka anyagi támogatásban nem részesült.

Szerzői munkamegosztás: B. D. az általa és a további szerzők által észlelt esetek összegzésében, valamint a szakirodalom áttekintését követően a publikáció elkészítésében vett részt. B. E. és G. G. az általuk észlelt esetek ismertetésével és a közlemény revíziójában segítettek. M. G. a betegek radiológiai véleményezésében, egyes vizsgálatok elvégzésében vett részt. S. D. a kórszövet-tani minták elemzésével és véleményezésével járult hozzá a közlemény létrejöttéhez. V. A. az általa észlelt esetek ismertetésével, szakmai tanácsokkal és a publikáció szerkesztésével járult hozzá a közlemény elkészítéséhez. A cikk végleges változatát valamennyi szerző elolvasta és jóváhagyta.

Érdekltségek: A szerzőknek nincsenek érdekltségeik.

Irodalom

- [1] Honjo O, Uemura S, Murakami I. Simple testicular cyst in infants: a case report and review of the literature. *Eur J Pediatr Surg.* 2001; 11: 425–427.
- [2] Altadonna V, Snyder HM 3rd, Rosenberg HK, et al. Simple cysts of the testis in children: preoperative diagnosis by ultrasound and excision with testicular preservation. *J Urol.* 1988; 140: 1505–1507.
- [3] Kay R. Testis tumors in children. In: Belman AB, King LR, Kramer SA. (eds.) *Clinical pediatric urology.* Fourth edition. CRC Press, Boca Raton, FL, 2002; pp. 1313–1323.
- [4] Shukla AR, Woodard C, Carr MC, et al. Experience with testis sparing surgery for testicular teratoma. *J Urol.* 2004; 171: 161–163.
- [5] Schmidt SS. Congenital simple cyst of the testis: a hitherto undescribed lesion. *J Urol.* 1966; 96: 236–238.
- [6] Semjén D. Incidence of benign adult teratoma and comparative molecular (FISH) and immunohistochemical study in childhood and adult malignant cases. Doctoral thesis. [A benignus felnőttkori teratoma gyakorisága, valamint összehasonlító molekuláris (FISH) és immunhisztokémiai vizsgálata a gyermekkori és a felnőttkori malignus esetekkel. Doktori értekezés.] Pécsi Tudományegyetem, Általános Orvostudományi Kar, Patológiai Intézet, Pécs, 2018. [Hungarian]
- [7] García CJ, Zúñiga S, Rosenberg H, et al. Simple intratesticular cysts in children: preoperative sonographic diagnosis and histological correlation. *Pediatr Radiol.* 1999; 29: 851–855.
- [8] Reginelli A, D'Andrea A, Clemente A, et al. Does multiparametric US improve diagnostic accuracy in the characterization of small testicular masses? *Gland Surg.* 2019; 8: S136–S141.
- [9] Fang C, Huang DY, Sidhu PS. Elastography of focal testicular lesions: current concepts and utility. *Ultrasonography* 2019; 38: 302–310.

- [10] Rushton HG, Belman AB, Sesterhenn I, et al. Testicular sparing surgery for prepubertal teratoma of the testis: a clinical and pathological study. *J Urol.* 1990; 144: 726–730.
- [11] Testicular tumours. In: Dénes J, Pintér A. (eds.) *Pediatric surgery and its borderlines.* [Heredaganatok. In: Dénes J, Pintér A. (szerk.) *Gyermeksebészet és határterületei.*] Medicina Könyvkiadó, Budapest, 1987; pp. 391–395. [Hungarian]
- [12] Pintér A. Testicular tumours. In: Pintér A. *Syllabus of paediatric surgery.* [Heretumorok. In: Pintér A. *Gyermeksebészeti vezérfonal.*] Medicina Könyvkiadó, Budapest, 2005; pp. 184–186. [Hungarian]
- [13] Brosman SA. Male genital tract. In: Kelalis PP, King LR, Belman AB. (eds.) *Clinical pediatric urology.* Second edition. Saunders, Philadelphia, PA, 1985; pp. 1202–1219.
- [14] Duffy PG, Sebire NJ. Genitourinary malignancies. In: Thomas DF, Duffy PG, Rickwood AM. (eds.) *Essentials of paediatric urology.* Second edition. Informa Healthcare, CRC Press, Boca Raton, FL, London, 2008; pp. 295–306.
- [15] Straub E, Hohenfellner R. Testicular tumors. In: Eckstein HB, Hohenfellner R, Williams DJ. (eds.) *Surgical pediatric urology.* Georg Thieme Publishers, Stuttgart, 1977; pp. 466–473.
- [16] Ross JH, Kay R, Elder J. Testis sparing surgery for pediatric epidermoid cysts of the testis. *J Urol.* 1993; 149: 353–356.
- [17] Walla JS. Gonadal tumors. In: Stringer MD, Oldham KT, Mouriquand PD. (eds.) *Paediatric surgery and urology: long-term outcomes.* Second edition. Cambridge University Press, Cambridge, 2006; pp. 707–723.
- [18] Pinter A. Testicular tumors. In: Gupta DK, Carachi R. *Pediatric oncology (Surgical and medical aspects).* Jaypee Brothers Medical Publishers, New Delhi, 2007; pp. 287–298.
- [19] Fábíán K, Mohay G, Semjén D, et al. Testicular cyst in childhood – a little-known entity. [Hercysta gyermekkorban – egy kevésbé ismert entitás.] *Gyermekgyógy.* 2017; 68: 117–119. [Hungarian]

(Balogh Dorottya dr.,
Pécs, József Attila út 7., 7623
e-mail cím: baloghdorottya333@gmail.com)

„Beneficia plura recipit qui scit reddere.”
(Több jót kap az, ki képes viszonzni.)