

Паратестикулярная саркома мошонки

М.Е. Новиков¹, А.Д. Кудрявцев², З.К. Глушницкая³

¹ГБУЗ ВО «Центральная городская больница г. Коврова»; Россия, 601915 Ковров, ул. Еловая, 5;

²ФГБНУ «Центральная клиническая больница Российской академии наук»; Россия, 117593 Москва, Литовский бульвар, 1А;

³ООО «Клиника инновационной диагностики «Медика»; Россия, 600006 Владимир, ул. Вокзальная, 24

Контакты: Михаил Евгеньевич Новиков dr_Novikov.M@mail.ru

Саркома паратестикулярных тканей является редкой злокачественной опухолью. В связи с этим правильная постановка диагноза может быть затруднена и проведена только методом исключения. Лучевая диагностика применяется на всех этапах обследования пациентов с новообразованиями мошонки и имеет высокую эффективность при первичном стадировании заболевания, оценке эффективности лечения и выявлении прогрессирования и рецидива заболевания. В настоящей статье представлен клинический случай диагностики и оперативного лечения паратестикулярной саркомы.

Ключевые слова: паратестикулярная саркома, редкая опухоль мошонки, рак яичка, магнитно-резонансная томография мошонки, клинический случай, орхифуниктуэктомия

Для цитирования: Новиков М.Е., Кудрявцев А.Д., Глушницкая З.К. Паратестикулярная саркома мошонки. Онкоурология 2022;18(1):151–5. DOI: 10.17650/1726-9776-2022-18-1-151-155.

Paratesticular sarcoma of the scrotum

M.E. Novikov¹, A.D. Kudryavtsev², Z.K. Glushnitskaya³

¹Central City Hospital of Kovrov; 5 Elovaya St., Kovrov 601915, Russia;

²Central Clinical Hospital of the Russian Academy of Sciences; 1A Litovskiy Bul'var, Moscow 117593, Russia;

³Clinic of Innovative Diagnostics "Medika"; 24 Vokzalnaya St., Vladimir 600006, Russia

Contacts: Mikhail Evgenievich Novikov dr_Novikov.M@mail.ru

Paratesticular sarcoma is a rare malignant tumor. In this regard, the correct diagnosis can be difficult and made only by the method of exclusion. Radiation diagnostics is used at all stages of the examination of patients with scrotal neoplasms and is highly effective in the primary staging of the disease, in assessing the effectiveness of treatment and in identifying the progression and recurrence of the disease. This article presents a clinical case of diagnosis and surgical treatment of paratesticular sarcoma.

Key words: paratesticular sarcoma, rare scrotal tumor, testicular cancer, scrotal magnetic resonance imaging, clinical case, orchifuniculectomy

For citation: Novikov M.E., Kudryavtsev A.D., Glushnitskaya Z.K. Paratesticular sarcoma of the scrotum. Onkourologiya = Cancer Urology 2022;18(1):151–5. (In Russ.). DOI: 10.17650/1726-9776-2022-18-1-151-155.

Введение

Объемные образования органов мошонки — достаточно редкая патология. Опухоли яичка встречаются в 1–1,5 % случаев в структуре общей онкологической заболеваемости среди мужчин и составляют 5 % среди опухолей уrogenитального тракта. По статистике рак яичка составляет 90 % всех случаев опухолей тестикула [1]. Опухоли паратестикулярных тканей встречаются

гораздо реже, большинство из них доброкачественные: липома, аденоматоидная опухоль, лейомиома [2].

Одной из редких злокачественных опухолей яичка и паратестикулярных тканей является саркома. По данным исследования, проведенного в 2017 г., частота встречаемости саркомы яичка составляет менее 1 % среди всех опухолей тестикул, средний возраст выявления этого заболевания — 55 лет [3].

Среди паратестикулярных сарком выделяют липосаркомы, рабдомиосаркомы и лейомиосаркомы — наиболее часто встречающиеся опухоли. Большинство паратестикулярных сарком развивается из семенного канатика [4, 5].

В отечественной литературе не удалось найти опубликованного клинического наблюдения саркомы яичка и/или паратестикулярных тканей. В зарубежных публикациях описаны единичные случаи выявления саркомы яичка [6], что подтверждает данные о редкой встречаемости такого заболевания [7, 8].

В диагностике саркомы яичка и паратестикулярных тканей могут быть использованы все методы лучевой диагностики. На первом этапе наиболее рациональным методом, позволяющим неинвазивно и без лучевой нагрузки провести обследование органов мошонки, является ультразвуковое исследование (УЗИ). В тех случаях, когда диагностической информации недостаточно, необходимо проведение магнитно-резонансной томографии (МРТ). Она обладает высокой эффективностью в обнаружении и дифференциальной диагностике образований мошонки, является методом выбора на втором этапе обследования [9]. При МРТ органов мошонки, как правило, определяется мягкотканное гетерогенное образование с выраженным контрастированием. Также МРТ позволяет выявить признаки локального метастазирования заболевания. Если есть подозрение на отдаленное метастазирование заболевания, показана компьютерная томография, которая в зависимости от конкретного случая может быть проведена в объеме исследования брюшной полости или брюшной полости и грудной клетки.

В редких случаях, когда выполнение МРТ невозможно по техническим причинам или в связи с наличием противопоказаний к исследованию, а также при подозрении на отдаленное метастазирование, эффективным методом диагностики является позитронно-эмиссионная томография, совмещенная с компьютерной томографией, с ^{18}F -фтордезоксиглюкозой (ПЭТ/КТ с ^{18}F -ФДГ) [10].

Клинический случай

Пациент Е., 76 лет, обратился к урологу с жалобами на периодические ноющие боли в левой половине мошонки, увеличение размера левой половины мошонки. Из анамнеза известно, что данные жалобы беспокоили на протяжении 6 мес. Развитие начала заболевания пациент ни с чем не связывает. За медицинской помощью не обращался, самостоятельно не лечился.

При осмотре пациента: состояние удовлетворительное, нормостенический тип телосложения (индекс массы тела $25,7 \text{ кг/м}^2$), кожные покровы бледно-розовой окраски. Живот не вздут, мягкий, безболезненный при пальпации. Перитонеальные симптомы отрицательные. Объемных образований в брюшной полости не пальпировалось.

Наружные половые органы развиты правильно. Отмечалось увеличение левой половины мошонки, где пальпировалось округлое объемное образование яичка размером $9 \times 8 \times 10 \text{ см}$, бугристое, плотное, безболезненное. Яичко и придаток слева четко не дифференцировались. Нечетко пальпировалось незначительное скопление жидкости в полости левой половины мошонки. Левый семенной канатик не изменен. Паховые лимфатические узлы слева не увеличены, безболезненные, смещаемые, размером до $0,8 \text{ см}$. При амбулаторном обследовании данные общеклинических анализов крови, мочи, биохимические показатели крови, онкомаркеры в пределах возрастной нормы: уровни общего простатического специфического антигена — $0,73 \text{ нг/мл}$, альфа-фетопротейна (АФП) — $3,36 \text{ нг/мл}$, хорионического гонадотропина человека (ХГЧ) — $0,1 \text{ мМЕ/л}$, лактатдегидрогеназы (ЛДГ) — 213 Ед/л .

При УЗИ органов мошонки наблюдалась эхокартина злокачественного образования яичка: левое яичко размером $3,7 \times 4,9 \times 7,6 \text{ см}$ ($V = 71,69 \text{ см}^3$) с множественными изо- и гипоехогенными включениями (рис. 1), нарушением дифференцировки между яичком и придатком, усилением кровотока в режиме доплеровского картирования. В некоторых плоскостях сканирования лоцировалась псевдокапсула между яичком и новообразованием. Малое гидроцеле слева (20 мл). Правое яичко без видимых изменений ($V = 12,8 \text{ см}^3$).

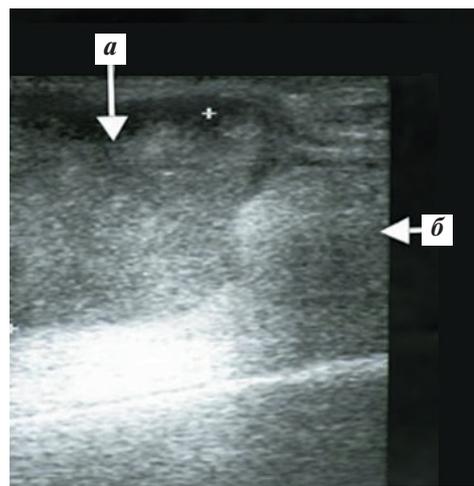


Рис. 1. Ультразвуковое исследование органов мошонки. Определяются увеличение левого яичка в размере, наличие в его структуре множественных изо- и гипоехогенных включений: а — новообразование; б — яичко
Fig. 1. Ultrasound of the scrotum organs. An increase in the size of the left testicle, the presence of multiple iso- and hypoechoic inclusions in the structure is determined: a — neoplasm; б — testicle

При УЗИ органов брюшной полости, почек, забрюшинного пространства, мочевого пузыря патологии не выявлено. Отмечались увеличение объема предстательной железы до 33 см^3 , диффузные изменения ее структуры. По данным УЗИ мягких тканей изменения паховых и забрюшинных лимфатических узлов не определялись.

При рентгенографии органов грудной клетки патологии сердца и легких не выявлено. С учетом отсутствия повышения уровней онкомаркеров герминогенных опухолей яичка (АФП, β -ХГЧ) принято решение о проведении дообследования пациента: МРТ наружных половых органов, забрюшинного пространства и левой подвздошно-паховой области.

По данным МРТ, проведенного на аппарате Phillips Achieva с напряженностью магнитного поля 1,5 Тл с шагом 3 мм, с контрастным усилением препаратом омнискан 10,0 мл выявлены неопластические изменения паратестикулярной ткани слева. Патологические изменения яичка не диагностированы (рис. 2).

Данные МРТ: в паратестикулярной области слева определяется многоузловое объемное образование размером $9,1 \times 5,8 \times 7,5$ см с перегородками, сосудистыми структурами, четким неровным контуром, выраженным перифокальным отеком жировой клетчатки и небольшим экссудативным компонентом, ограничением свободной диффузии по измеряемому коэффициенту диффузии, диффузно-неоднородным накоплением контрастного препарата опухолью. Яички симметричные, нормальных размеров и однородной структуры. Утолщения оболочек

левого яичка не выявлено. Определяется умеренное гидроцеле слева. Регионарные лимфатические узлы не изменены.

На основании данных обследования пациенту был установлен клинический диагноз: опухоль левой половины мошонки TINOM0. С учетом быстрого прогрессирования заболевания, невозможности исключить развитие патологии из оболочек яичка и прорастание в них, а также возраста пациента было принято решение выполнить удаление опухоли левой половины мошонки паховым доступом с орхифуникулэктомией слева единым блоком.

Без технических трудностей 16.06.2021 пациенту была выполнена операция. Паратестикулярная опухоль оказалась тесно спаянной с оболочками яичка. При удалении препарата влагалищная оболочка не повреждена. Интраоперационно метастазов в паховых лимфатических узлах не выявлено.

Результаты гистологического исследования: макроскопически левое яичко с придатком в оболочке размером $5,5 \times 4,1 \times 2,5$ см. При вскрытии оболочек выделяется прозрачная жидкость. Яичко в капсуле размером $4,0 \times 2,5 \times 2,2$ см, на разрезе однородной структуры, светлорусоватого цвета. С оболочками яичка посредством

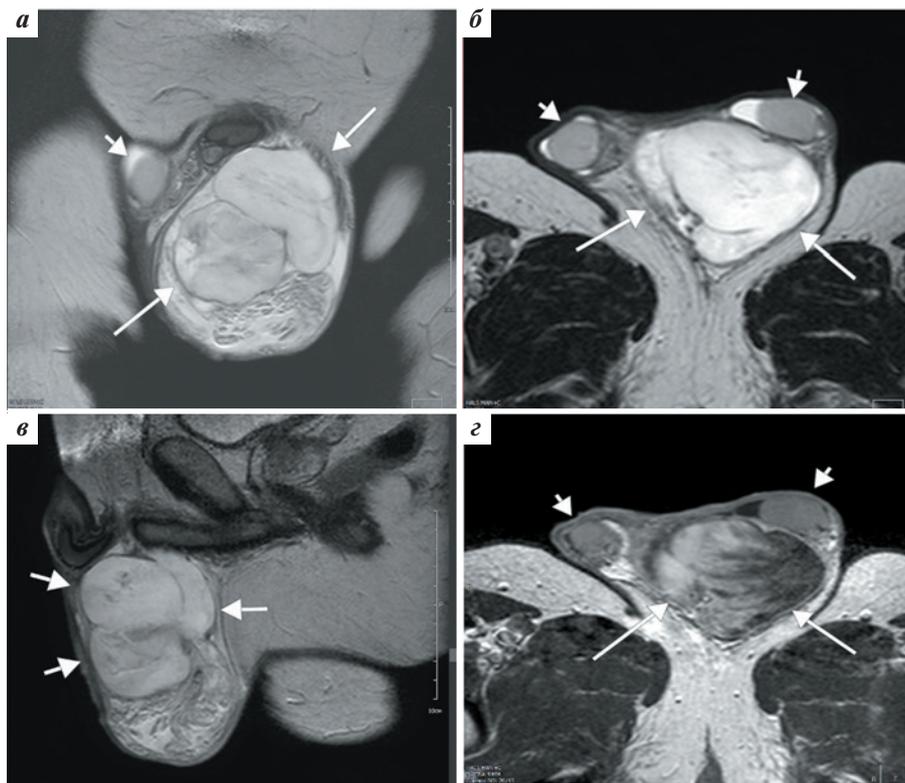


Рис. 2. Магнитно-резонансные томограммы мошонки: T2-взвешенные изображения в коронарной (а), аксиальной (б) и сагиттальной (в) плоскостях; г – T1-взвешенное изображение в аксиальной плоскости. Определяется многоузловое объемное образование с перегородками, выраженным патологическим контрастированием и небольшим экссудативным компонентом

Fig. 2. MRI images of the scrotum: T2-weighted, coronal (a), axial (b), sagittal (c) plane; г – T1-weighted image in the axial plane. A multinodular mass with septa, with pronounced pathological contrasting and a small exudative component is determined

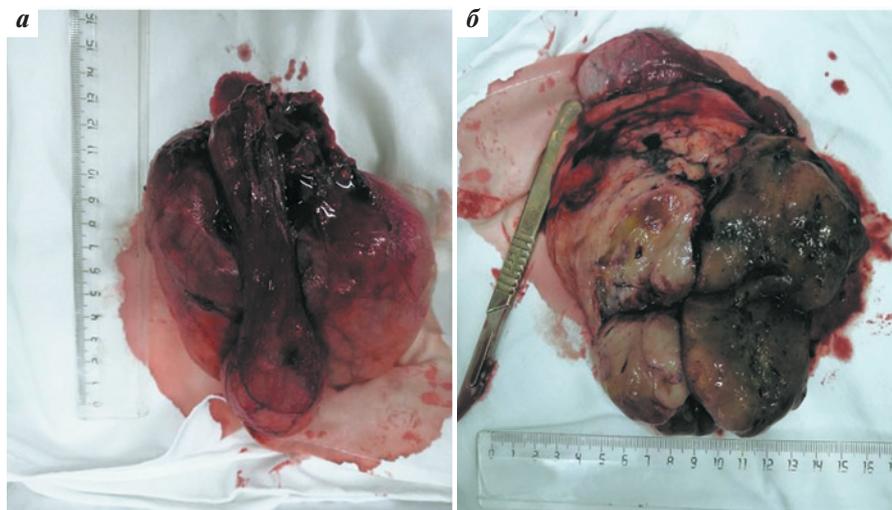


Рис. 3. Макропрепарат левого яичка с канатиком и опухолью паратестикулярных тканей: а — опухоль интимно спаяна капсулой с оболочками яичка; б — очаги кровоизлияний на разрезе опухоли

Fig. 3. Macropreparation of the left testicle with a cord and a tumor of paratesticular tissues: a — the tumor is intimately fused with a capsule with testicular membranes. Inthetesection: б — tumor with focio fhemorrhage

капсулы соединяется узел размером $11,0 \times 9,0 \times 6,0$ см мягкоэластической консистенции, серо-желтого цвета с очагами кровоизлияний (рис. 3).

Микроскопически: паратестикулярная опухоль, представляющая собой полиморфноклеточную саркому неясного гистогенеза. Ткань яичка без опухолевого роста. Семенной канатик интактен, край резекции семенного канатика вне опухоли. В препарате из оболочек яичка определяются мелкие фрагменты злокачественной опухоли. Лимфоваскулярной инвазии не выявлено. При иммуногистохимическом исследовании получены положительная реакция с антителами к виментину, десмину, CD34 и отрицательная реакция с антителами к кальпону, кальдесмону, гладкомышечному актину, миогенину, миоглобину, MYOD1, S100, CD68, PLAP, SALL4, CD117, HMB-45, мелану А, CD31, панцитокератину, AE1/AE3. **Заключение:** иммунофенотип опухоли точно определить не представляется возможным, нельзя исключить саркому из мышечной ткани, ангиосаркому.

Послеоперационный период протекал без особенностей. Швы сняты на 8-е сутки. Рана зажила первичным натяжением. На 9-е сутки после операции в удовлетворительном состоянии пациент выписан из стационара под наблюдение к онкоурологу по месту жительства. Консультирован в областном клиническом онкодиспансере. Назначена мультиспиральная компьютерная томография органов брюшной полости, забрюшинного пространства с контрастным усилением для выявления метастатического поражения. В ходе обследования очаговых образований органов брюшной полости, забрюшинного пространства, лимфаденопатии в исследуемой области не выявлено. Через 3 мес после операции при УЗИ

послеоперационного рубца и зон регионарного лимфооттока рецидива основного заболевания не выявлено, регионарные лимфатические узлы не изменены.

Обсуждение

Представлено клиническое наблюдение диагностики и успешного оперативного лечения саркомы паратестикулярных тканей и яичка. На основании данных общеклинических анализов крови, мочи, биохимических показателей крови, уровней онкомаркеров (общего простатического специфического антигена, АФП, ХГЧ, ЛДГ), УЗИ органов мошонки, органов брюшной полости, почек, забрюшинного пространства, мочевого пузыря, рентгенографии грудной клетки, МРТ наружных половых органов, забрюшинного пространства и левой подвздошно-паховой области пациенту был установлен клинический диагноз: опухоль левой половины мошонки T1N0M0. Пациенту выполнена орхифуникулэктомия слева с удалением опухоли левой половины мошонки паховым доступом единым блоком. Объем оперативного вмешательства обусловлен относительно быстрым прогрессированием заболевания, невозможностью на дооперационном этапе исключить развитие патологии из оболочек яичка и прорастание в них, а также возрастом пациента. Исход вмешательства и ближайшего отдаленного результата лечения (через 3 мес) оценивается как удовлетворительный.

Ввиду редкости данной патологии объем обследования не имеет значимых отличий от порядка диагностического обследования при герминогенных опухолях яичка.

Заключение

Саркома паратестикулярных тканей — крайне редкая опухоль. Среди образований органов мошонки чаще всего встречается вторичное поражение яичка при опухолях гениталий либо органов малого таза. При выявлении новообразования органов мошонки диагностические методы выстраиваются по принципу от менее инвазивных и безопасных к более инвазивным и сопровождающимся лучевой нагрузкой. Так, на первом этапе исследования необходимо проведение УЗИ, а затем — МРТ. При необходимости поиска отдаленного метастатического поражения возможно выполнение мультиспиральной компьютерной томографии и ПЭТ/КТ с ¹⁸F-ФДГ. Гистологическая верификация образования позволяет предсказать прогноз и определить вероятность развития рецидива заболевания.

Пятилетняя выживаемость пациентов с паратестикулярной саркомой составляет 58–80 %, при низкодифференцированных опухолях — порядка 62 % в связи с частым метастазированием опухолей в регионарные лимфатические узлы и отдаленным вторичным распространением [11].

Описанный клинический случай представляет интерес, так как из-за редкой встречаемости опухоли предположить генез заболевания на дооперационном этапе зачастую не представляется возможным. Это может привести к недооценке тяжести состояния пациента и ошибкам диагностической тактики. Осведомленность о редких гистологических формах заболевания поможет увеличить выживаемость пациентов и повысить качество их жизни.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Park J.S., Kim J., Elghiatty A., Ham W.S. Recent global trends in testicular cancer incidence and mortality. *Medicine* 2018;97(37):e12390. DOI: 10.1097/MD.00000000000012390.
2. Humphrey P.A., Moch H., Cubilla A.L. et al. The 2016 WHO Classification of Tumours of the Urinary System and Male Genital Organs – Part B: Prostate and Bladder Tumours. *Eur Urol* 2016;70(1):106–19. DOI: 10.1016/j.eururo.2016.02.028.
3. Alsidawi S., Westin G.F.M., Okuno S.H. Outcomes and predictors of survival in testicular sarcomas. *J Clin Oncol* 2017;35(6_suppl):404. DOI: 10.1200/JCO.2017.35.6_SUPPL.404.
4. Keenan R.A., Riogh A.U.N.A., Stroiescu A. et al. Paratesticular sarcomas: a case series and literature review. *Ther Adv Urol* 2019;11:1756287218818029. DOI: 10.1177/1756287218818029.
5. Matias M., Carvalho M., Xavier L., Teixeira J.A. Paratesticular sarcomas: two cases with different evolutions. *Case Rep* 2014;2014(aug21 1):bcr2014205808. DOI: 10.1136/bcr-2014-205808.
6. Coleman J., Brennan M.F., Alektiar K., Russo P. Adult spermatic cord sarcomas: management and results. *Ann Surg Oncol* 2003;10(6):669–75. DOI: 10.1245/ASO.2003.11.014.
7. Nesrine M., Sellami R., Doghri R. et al. Testicular synovial sarcoma: a case report. *Cancer Biol Med* 2012;9(4):274. DOI: 10.7497/J.ISSN.2095-3941.2012.04.010.
8. Lavallée L.T., Delatour N.L.R., Cagiannos I. et al. A unique case of a sarcoma arising in a testicular non-seminomatous mixed germ cell tumour with a predominant yolk sac component. *Can Urol Assoc J* 2011;5(5):E81–3. DOI: 10.5489/CUAJ.10069.
9. tudniarek M., Skrobisz-Balandowska K., Modzelewska E. Scrotal imaging. *J Ultrason* 2015;15(62):245–58. DOI: 10.15557/JOU.2015.0021.
10. Federico S.M., Spunt S.L., Krasin M.J. et al. Comparison of PET-CT and conventional imaging in staging pediatric rhabdomyosarcoma. *Pediatr Blood Cancer* 2013;60(7):1128–34. DOI: 10.1002/PBC.24430.
11. Khoubehi B., Mishra V., Ali M. et al. Adult paratesticular tumours. *BJU Int* 2002;90(7):707–15. DOI: 10.1046/J.1464-410X.2002.02992.X.

Вклад авторов

М.Е. Новиков: разработка дизайна исследования, анализ полученных данных, написание текста статьи;
А.Д. Кудрявцев: обзор публикаций по теме статьи, написание текста статьи;
З.К. Глушницкая: обработка материала, написание текста статьи.

Authors' contributions

M.E. Novikov: development of research design, analysis of the obtained data, article writing;
A.D. Kudryavtsev: review of publications on the topic of the article, article writing;
Z.K. Glushnitskaya: processing of the material, article writing.

ORCID авторов / ORCID of authors

А.Д. Кудрявцев / A.D. Kudryavtsev: <https://orcid.org/0000-0003-4277-1957>

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Финансирование. Работа выполнена без спонсорской поддержки.

Financing. The work was performed without external funding.

Соблюдение прав пациентов. Пациент подписал информированное согласие на публикацию своих данных.

Compliance with patient rights. The patient gave written informed consent to the publication of his data.

Статья поступила: 24.10.2021. Принята к публикации: 25.02.2022.

Article submitted: 24.10.2021. Accepted for publication: 25.02.2022.