

·论著·

# 小儿骶尾部畸胎瘤预后不良的影响因素分析

刘登辉 肖雅玲 李 勇 黎 明 黄 召

**【摘要】 目的** 探讨影响小儿骶尾部畸胎瘤预后的危险因素。 **方法** 回顾性分析 2006 年 1 月至 2015 年 12 月由湖南省儿童医院收治的 78 例小儿骶尾部畸胎瘤患儿临床资料(包括诊断时年龄、性别、临床分型、肿瘤大小、肿瘤性状、血清 AFP 值、病理类型及术后并发症),单因素分析采用  $\chi^2$  检验,多因素分析采用 Logistic 回归。 **结果** 多因素 Logistic 发现影响小儿骶尾部畸胎瘤预后的危险因素为:病理类型( $OR = 17.902, 95\% CI: 7.652 \sim 24.362$ )、诊断年龄( $OR = 8.601, 95\% CI: 4.321 \sim 13.350$ )、临床分型( $OR = 7.161, 95\% CI: 3.215 \sim 11.856$ )、肿瘤性状( $OR = 5.493, 95\% CI: 1.420 \sim 9.325$ )。 **结论** 诊断年龄、临床分型、肿瘤性状及病理类型是影响小儿骶尾部畸胎瘤预后的影响因素。

**【关键词】** 儿童; 骶尾部畸胎瘤; 预后; 影响因素

**Analysis of prognostic risk factors for children with sacrococcygeal teratoma.** Liu Denghui, Xiao Yaling, Li Yong, Li Ming, Huang Zhao. Children's hospital of Hunan Province, Changsha 410007, China.

**【Abstract】 Objective** To explore the prognostic risk factors for children with sacrococcygeal teratoma (SCT). **Methods** The clinical data were analyzed for 78 SCT children from January 2006 to December 2015. And the relevant factors included gender, diagnostic age, clinical classification, tumor size, tumor traits, serum level of alpha fetoprotein (AFP), pathological type and postoperative complications. The postoperative recurrence and canceration of teratoma were followed up simultaneously. Then statistical analysis was made by SPSS for each prognostic factor. **Results** Pathological type ( $OR = 17.902, 95\% CI: 7.652 \sim 24.362$ ), diagnostic age ( $OR = 8.601, 95\% CI: 4.321 \sim 13.350$ ), clinical classification ( $OR = 7.161, 95\% CI: 3.215 \sim 11.856$ ) and tumor trait ( $OR = 5.493, 95\% CI: 1.420 \sim 9.325$ ) were significantly associated with prognosis ( $P < 0.05$ ). **Conclusion** Diagnostic age, clinical classification, tumor trait and pathological type are prognostic risk factors for children with sacrococcygeal teratoma.

**【Key words】** Child; Sacrococcygeal Teratoma; Prognosis; Risk Factors

畸胎瘤是婴幼儿期常见的实体肿瘤,由 3 种原始胚层的胚细胞通过异常发育而形成,好发部位为身体中线及其两侧(如骶尾部、性腺、腹膜后、纵隔部位等),其中以骶尾部畸胎瘤(sacrococcygeal teratoma, SCT)最为常见<sup>[1-2]</sup>。本研究通过回顾性分析 SCT 患儿的临床资料和预后情况,探讨其临床特点及其预后的相关危险因素,为小儿 SCT 的系统治疗提供参考依据。

## 材料与方

### 一、一般资料

选取湖南省儿童医院 2006 年 1 月至 2015 年 12

月收治的 78 例骶尾部畸胎瘤患儿作为研究对象。其中男童 24 例,女童 54 例;临床分型:Ⅰ型、Ⅱ型共 61 例,Ⅲ型、Ⅳ型 17 例;年龄 0~6 岁,平均 1.5 岁;良性肿瘤 63 例,恶性肿瘤 15 例。

### 二、研究方法

将随访过程中出现复发、恶变及死亡的病例归入预后不良组,其余病例归入预后良好组。并纳入患儿的性别、诊断年龄、临床分型、肿瘤大小、肿瘤性状、血清 AFP 值、病理类型及术后并发症等临床资料进行危险因素分析。

### 三、统计学处理

采用 SPSS18.0 进行数据分析与处理。对于性别、年龄、分型、肿瘤性状、大小等计数资料采用频数分析, SCT 预后危险因素的单因素分析采用  $\chi^2$  检验,多因素分析则采用二分类 Logistic 回归,以  $P < 0.05$  为差异有统计学意义。

## 结 果

### 一、影响骶尾部畸胎瘤预后的单因素分析

表 1 SCT 患儿预后影响因素的单因素分析 [n(%)]

Table 1 Univariate analysis of prognostic factors for SCT children [n(%)]

变量	分类	预后良好	预后不佳	$\chi^2$ 值	P 值
性别	男	21 (87.50)	3 (12.50)	0.222	0.638
	女	45 (83.33)	9 (16.67)		
诊断时年龄 (月)	<6	49 (92.45)	4 (7.55)	9.974	0.007
	6~24	10 (62.50)	6 (37.50)		
	>24	6 (66.67)	3 (33.33)		
临床分型	I 型	32 (91.43)	3 (8.57)	16.072	0.001
	II 型	23 (88.46)	3 (11.54)		
	III 型	4 (50.00)	4 (50.00)		
	IV 型	4 (44.44)	5 (55.56)		
肿瘤性状	囊性	28 (96.55)	1 (3.45)	6.477	0.015
	囊实性/实性	24 (72.73)	9 (27.27)		
肿瘤大小 (cm)	<5	21 (84.00)	4 (16.00)	0.555	0.758
	5~10	34 (82.93)	7 (17.07)		
	>10	11 (91.67)	1 (8.33)		
血清 AFP 定性结果	(-)	20 (86.96)	3 (13.04)	0.804	0.370
	(+)	43 (78.18)	12 (21.81)		
病理类型	成熟型	56 (88.89)	7 (11.11)	21.938	<0.001
	非成熟型	5 (33.33)	10 (66.67)		
术后并发症	无	45 (86.54)	7 (13.46)	1.154	0.283
	有	20 (76.92)	6 (23.08)		

### 二、影响骶尾部畸胎瘤预后的多因素分析

为控制混杂偏倚,此处采用二分类 Logistic 回归对骶尾部畸胎瘤预后危险因素进行多因素分析。以单因素分析中有统计学意义的 4 个变量为自变量,以患儿预后情况分级为应变量(赋值见表 2),以入选标准  $\alpha=0.10$ ,剔除标准  $\beta=0.15$ ,进行多因素 Logistic 回归。

表 2 影响 SCT 患儿预后危险因素赋值

Table 2 Risk factors for prognosis in SCT children

因素	变量名	赋值说明
诊断年龄	$X_1$	<6 个月 = 1; 6~24 个月 = 2; >24 个月 = 3
临床分型	$X_2$	I/II 型 = 1; III/IV 型 = 2
肿瘤性状	$X_3$	囊性 = 1; 囊实性/实性 = 2
病理类型	$X_4$	成熟型 = 1; 非成熟型 = 2
预后情况	$Y$	良好 = 1, 不良 = 2

影响 SCT 患儿预后的单因素分析结果显示,“诊断年龄”、“临床分型”、“肿瘤性状”及“病理类型”与患儿预后有关( $P<0.05$ )。见表 1。

由表 3 可知,最终进入 Logistic 回归模型的因素分别是“诊断时年龄”、“临床分型”、“肿瘤性状”及“病理类型”,4 个因素对预后的影响程度从高到底依次为病理类型 ( $OR=17.902, 95\% CI: 7.652 \sim 24.362$ )、诊断年龄 ( $OR=8.601, 95\% CI: 4.321 \sim 13.350$ )、临床分型 ( $OR=7.161, 95\% CI: 3.215 \sim 11.856$ )、肿瘤性状 ( $OR=5.493, 95\% CI: 1.420 \sim 9.325$ )。

## 讨 论

SCT 是胎儿和新生儿最常见的胚芽性肿瘤,一旦确诊,无论瘤体大小,都应尽早进行手术切除,防止肿瘤恶变<sup>[3,4]</sup>。同时,了解影响 SCT 预后的相关危险因素,对指导临床综合治疗、术后长期随访及提高患儿生存率具有重要意义。

表 3 影响 SCT 患儿预后危险因素的 logistic 回归分析

Table 3 Logistic regression analysis of risk factors for prognosis in SCT children

因素	$\beta$	S. E.	Walds $\chi^2$	P 值	Exp( $\beta$ )	95% CI
诊断年龄	3.011	0.734	8.101	0.005	8.601	4.321 ~ 13.350
临床分型	1.804	0.729	5.297	0.022	7.161	3.215 ~ 11.856
肿瘤性状	1.264	0.879	43.644	<0.001	5.493	1.420 ~ 9.325
病理类型	2.766	0.831	11.947	<0.001	17.902	7.652 ~ 24.362

#### 一、患儿性别和诊断时年龄与预后的关系

SCT 在胎儿出生时即可发现,男女发病比例约为 1:2<sup>[5]</sup>。本组临床资料中,男童 24 例,占 30.77%,女童 54 例,占 69.23%,男女比例为 1:2.25,与既往报道结果一致。另外,SCT 具有潜在恶变的能力,随着年龄增长恶变率呈增高趋势<sup>[6]</sup>,本研究将患儿年龄划分为 <6 个月、6~24 个月、>24 个月 3 组,其中年龄组 6~24 个月患儿术后复发率最高,其次为 >24 个月患儿,6 个月以内患儿复发率最低,且经统计分析发现患儿诊断时年龄是影响 SCT 预后的危险因素<sup>[7]</sup>。这也进一步说明,骶尾部畸胎瘤一经确诊,应尽早手术治疗。

#### 二、临床分型和囊实性与预后的关系

临床上按 Altman 的分类方法可将 SCT 分为 4 种临床类型<sup>[8]</sup>: I 型为显型; II 型为混合型(肿物上极不超过小骨盆); III 型为混合型(肿物上极超过小骨盆,可达腹腔); IV 型为隐型。本组病例中 I 型、II 型中的恶性比例明显低于 III 型、IV 型,这说明临床分型越高,恶变率也越高。通过随访发现,III 型、IV 型患儿术后复发率也明显高于 I 型、II 型,影响因素分析的结果也显示临床类型为 III 型及 IV 型 SCT 预后不良的高危因素。对于 III 型、IV 型患儿而言,直肠指检触及骶前肿块是早期的典型体征之一,故临床上应强调对排尿排便困难、便秘的患儿行直肠指检。此外,肿瘤性状也是影响 SCT 预后的高危因素;与囊性 SCT 相比,实性或囊实混合性 SCT 恶变发生率更高,囊性肿瘤通常预后较好。

#### 三、AFP 值及肿瘤大小与预后的关系

AFP 是一种肝脏肿瘤的血清标志物,目前临床上将血清 AFP 值作为判断畸胎瘤预后的重要指标<sup>[9]</sup>。但本研究发现 AFP 值不是影响患儿术后预后的危险因素,即血清 AFP 值超过肝脏肿瘤诊断阈值的患儿预后不一定差,这可能是因为小儿 SCT 的血清 AFP 值受到其生理特性的影响,且 AFP 升高并不一定提示肿瘤进展(如肝功能异常的患儿也可伴有 AFP 水平升高),因此二者间并未表现出良好的相关性<sup>[10]</sup>。大多数患儿术后血清 AFP 值恢复到正

常范围,因此,术后监测患儿 AFP 水平有助于早期发现肿瘤是否有复发倾向。在本组病例资料中,患儿术前均行 B 超、CT 或 MRI 检查,肿瘤最小直径为 2.8 cm,最大直径为 15.3 cm;其中直径 <5 cm 者 25 例,占 32.05%;直径范围在 5~10 cm 者 41 例,占 52.56%;直径 >10 cm 者有 12 例,占 15.38%。影响因素分析结果显示,畸胎瘤的大小对于 SCT 患儿预后情况无明显影响,表明患儿的预后与肿瘤大小无明显相关性。

#### 四、病理类型及术后并发症与预后的关系

按组织病理学分型可将畸胎瘤分为成熟型、未成熟型和恶性型 3 种类型<sup>[11]</sup>。未成熟畸胎瘤性质介于成熟型和恶性畸胎瘤之间,因其含有神经胶质组织可发生转移,从而表现出恶性倾向。但小儿未成熟型畸胎瘤不等于恶性肿瘤,只有当瘤体组织中含有恶性生殖细胞灶或神经组织成分时才出现恶性生物学行为,故病理组织成分与患儿术后复发、恶变等预后情况密切相关。本研究中,术后病理报告提示成熟型者 63 例(83.87%),非成熟型者为 15 例(19.23%)。非成熟型者有 10 例(66.67%) 在术后出现复发或恶变,且复发恶变后即使进行积极治疗病死率仍较高,其中 6 例(60.00%) 复发后因治疗无效死亡,影响因素分析结果也显示非成熟型病理类型是预后不良的高危因素。Njim 等<sup>[12]</sup>研究发现良性 SCT 行早期手术切除后大多预后良好,但仍有一定的复发率,复发后恶性率更高。本组成熟型 63 例中有 7 例(11.11%) 术后出现复发或恶变。Margherita 等<sup>[13]</sup>认为肿瘤发生时存在小灶性恶性成份,可能是因为手术切除后遗留了小型的恶性病灶(如骶尾骨部位的恶性病灶组织未完全切除干净),最终造成肿瘤复发或恶变,因此术后定期门诊随访对肿瘤复发或恶变几率的降低具有重要意义,一旦出现复发则需综合治疗。临床上常见的 SCT 术后并发症包括切口感染、裂开、皮下积液、大小便失禁、尿潴留、皮瓣坏死、慢性窦道形成等。影响因素分析的结果显示术后并发症不是影响小儿 SCT 预后的相关危险因素,可认为术后并发症与

肿瘤复发、恶变情况无明显相关性。尽管术后并发症不影响预后,但临床工作中仍应注意并发症的处理,尽可能减少术后并发症。

综上所述,小儿 SCT 的预后影响因素主要包括诊断年龄、临床分型、肿瘤性状及病理类型。小儿 SCT 治疗应遵循“一旦确诊,都应尽早手术切除”的原则,对于恶性畸胎瘤还应加强综合治疗,若不能一期完整切除肿块,则需术前行辅助化疗,恶性肿瘤术后需结合病理检查结果决定是否需进一步行化疗或放疗,同时术后需对患儿进行长期、严密的复查和随访。

### 参考文献

- 施诚仁,金先庆. 小儿外科学(第4版)[M]. 北京:人民卫生出版社,2010:145.  
Shi CR, Jin XQ. Pediatric Surgery (4th Edition) [M]. People's Health Publishing House, 2010:145.
- Faheem M, Syed HH, Kardam D, et al. Teratoma of the lumbosacral region: a case report [J]. Journal of Medical Case Reports, 2011, 5 (1): 370. DOI: 10. 1186/1752 - 1947 - 5 - 370.
- 林正秀,赵一鸣,李仲荣,等. 小儿腹膜后畸胎瘤 29 例诊治体会[J]. 临床小儿外科杂志, 2013, 12 (3): 209 - 211 DOI:10. 3969/j. issn. 1671 - 6353. 2013. 03. 013.  
Lin ZX, Zhao YM, Li ZR, et al. Diagnosis and treatment of pediatric retroperitoneal teratoma: a report of 29 cases [J]. J Clin Ped Sur, 2013, 12 (3): 209 - 211. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671 - 6353. 2013. 03. 013.
- Lukaszewski T, Polczyńska-Kaniak E, Puacz P, et al. Sacrococcygeal teratoma in foetus-case report [J]. Ginekologia Polska, 2009, 80 (11): 861 - 864.
- Swamy R, Embleton N, Hale J. Sacrococcygeal teratoma over two decades: birth prevalence, prenatal diagnosis and clinical outcomes [J]. Prenatal Diagnosis, 2010, 28 (11): 1048 - 1051. DOI: 10. 1002/pd. 2122.
- Wakhlui A, Misra S, Tandon RK, et al. Sacrococcygeal teratoma [J]. Pediatric Surgery International, 2002, 18 (5 - 6): 384 - 387.
- 姚祥,王珊,何小庆,等. 399 例儿童畸胎瘤的单中心临床诊疗分析[J]. 临床小儿外科杂志, 2016, 15 (3): 241 - 245. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671 - 6353. 2016. 03. 011.  
Yao X, Wang S, He XQ, et al. Clinical diagnosis and therapy of pediatric teratomas: a report of 399 cases at a single center [J]. J Clin Ped Sur, 2016, 15 (3): 241 - 245. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671 - 6353. 2016. 03. 011.
- Penny SM. Sacrococcygeal teratoma: a literature review [J]. Radiologic Technology, 2012, 84 (1): 11.
- 何小庆,王珊,刘苗,等. 婴儿畸胎瘤甲胎蛋白量化检测的临床意义探讨[J]. 临床小儿外科杂志, 2014, 13 (2): 91 - 95. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671 - 6353. 2014. 02. 002.  
He XQ, Wang S, Liu M, et al. Retrospective study of the diagnostic value of quantitative alpha-fetoprotein in infants with teratomas [J]. Journal of Clinical Pediatric Surgery, 2014, 13 (2) 91 - 95. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671 - 6353. 2014. 02. 002.
- 陈子民,卢可士,叶明,等. 儿童骶尾部畸胎瘤临床分析[J]. 现代肿瘤医学, 2013, 21 (5): 1112 - 1114. DOI: 10. 3969/j. issn. 1672 - 4992. 2013. 05. 57.  
Chen ZM, Lu KS, Ye M, et al. Clinical analysis of sacrococcygeal teratoma in children [J]. Modern Oncology, 2013, 21 (5): 1112 - 1114. DOI: 10. 3969/j. issn. 1672 - 4992. 2013. 05. 57.
- Louis DN, Ohgaki H, Wiestler OD, et al. The 2007 WHO classification of tumours of the central nervous system. [J]. Cancer Imaging the Official Publication of the International Cancer Imaging Society, 2007, 114 (2): 97. DOI: 10. 1007/s00401 - 007 - 0243 - 4.
- Njim L, Moussa A, Ziadi J, et al. Malignant recurrence of "mature" sacrococcygeal teratoma. A clinicopathological study of 4 cases [J]. Rev Med Liege, 2011, 66 (1): 25 - 29.
- Lo CM, D'Angelo P, Cecchetto G, et al. Mature and immature teratomas: results of the first paediatric Italian study [J]. Pediatric Surgery International, 2007, 23 (4): 315. DOI: 10. 1007/s00383 - 007 - 1890 - 1.

(收稿日期:2017-03-12)

**本文引用格式:**刘登辉,肖雅玲,李勇,等. 小儿骶尾部畸胎瘤预后不良的影响因素分析[J]. 临床小儿外科杂志, 2018, 17 (12): 935 - 938. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671 - 6353. 2018. 12. 013.

**Citing this article as:** Liu DH, Xiao YL, Li Y, et al. Analysis of prognostic risk factors for children with sacrococcygeal teratoma [J]. J Clin Ped Sur, 2018, 17 (12): 935 - 938. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671 - 6353. 2018. 12. 013.