

## گزارش موردی از نوروبلاستوم پره ساکرال اولیه در شیرخوار ۹ ماهه

غلامرضا پناهنده<sup>۱\*</sup>، عبدالمجید طاهری<sup>۲</sup>، اکرم معتمدی<sup>۳</sup>

<sup>۱</sup>مرکز تحقیقات گیاهان دارویی، دانشگاه علوم پزشکی شهرکرد، شهرکرد، ایران؛ <sup>۲</sup>گروه رادیولوژی، دانشگاه علوم پزشکی شهرکرد،

شهرکرد، ایران؛ <sup>۳</sup>کمیته تحقیقات دانشجویی، دانشگاه علوم پزشکی شهرکرد، شهرکرد، ایران.

تاریخ دریافت: ۹۱/۹/۱۲ تاریخ پذیرش: ۹۲/۸/۱۲

### چکیده:

**زمینه و هدف:** نوروبلاستوما شایع ترین تومور جامد در کودکان است. در واقع، نزدیک به یک سوم موارد نوروبلاستوما در کودکان زیر ۱ سال تشخیص داده می شود؛ اما تومورهایی با محل اولیه در قدام ساکروم نادرند. لذا در مقاله حاضر یک مورد نوروبلاستوم ساکرال اولیه در شیرخوار ۹ ماهه جهت اطلاع پزشکان و کادر درمانی گزارش شده است.

**گزارش موردی:** در این گزارش موردی یک شیرخوار ۹ ماهه با شکایت بی قراری، بیوست مزمن، اتساع شکم و احتباس ادراری حاد بستری گردید. همزمان با این علائم استفراغ نیز وجود داشت. بیمار از ۳ روز پیش از بستری به عفونت تنفسی فوقانی و از ۳ ماه پیش از آن دچار بیوست شده بود. بررسی های سونوگرافیک، هیدرونفروز و هیدروویوتر دوطرفه در حد خفیف تا متوسط را نشان می داد ولی یک توده هتروژن-هایپواکو با اندازه ۳۴×۷۵ میلی متر نمایان بود. سی تی اسکن، یک بافت نرم با دانسیته پایین به قطر ۳۴×۷۴ میلی متر در خلف رکتوم و قدام ساکروم گزارش کرد که مطرح کننده تشخیص های احتمالی چون تراتوم ساکروکوکسیژیال یا به احتمال ضعیف تر تومور استرومایی رکتوم بود. گزارش پاتولوژی توده برداشته شده برای بیمار، تشخیص نوروبلاستوم را مطرح کرد و بیمار جهت تکمیل درمان به بیمارستان فوق تخصصی الزهرا اصفهان ارجاع داده شد.

**نتیجه گیری:** گزارش بافت شناسی توده برداشته شده، حاکی از نوروبلاستوم پره ساکرال اولیه بود؛ لذا هرچند شایع ترین تظاهر بالینی این تومور، توده شکمی است و مورد گزارش شده نادر است اما پزشکان باید در تشخیص های افتراقی خود آن را مد نظر قرار دهند.

**واژه های کلیدی:** شیرخوار، نوروبلاستوم پره ساکرال اولیه، تراتوم ساکروکوکسیژیال.

### مقدمه:

گانگلیونوروبلاستوما گفته می شود که ۱۳/۳-۱۰/۶٪ تومورهای نوروبلاستیک را شامل می شود و پیش آگهی های متفاوتی دارد (۳).

شایع ترین سن برای این تومور ۲۰ ماهگی است (۵) و نزدیک به یک سوم موارد نوروبلاستوما، در بچه های زیر ۱ سال اتفاق می افتد. چند تن از محققان معتقدند که نیمی از بیماران درگیری منطقه ای نشان می دهند و برخی از آنان نیز برداشتن کامل توده به کمک جراحی را به عنوان لازمه اصلی درمان می دانند و اظهار می کنند که جراحی اولیه در مورد ۵۰٪ این کودکان

نوروبلاستوما بدخیمی سلولهای چند پتانسیلی با منشا عصبی است که به طور خود بخودی یا در اثر درمان پسرفت نموده و یا به سمت گانگلیونوروما یا گانگلیونوروبلاستوما پیش می روند که این موضوع با پیش آگهی مطلوب همراه است (۱-۳). این ضایعات اغلب در ناحیه مدولای آدرنال، ناحیه پشت صفاقی خارج از آدرنال یا مدیاستینوم خلفی اتفاق می افتند که این پدیده به دلیل اقتباس سلول های تیغه عصبی از گانگلیون های سمپاتیک است (۴). هنگامی که نوروبلاستوما در مکان های کلاسیک رخ دهد،

\* نویسنده مسئول: شهرکرد، دانشگاه علوم پزشکی، گروه اطفال، تلفن: ۰۳۸۱۳۳۴۰۸۰۰. E-mail: gholamrezapanahandeh@gmail.com

سی تی اسکن یک بافت نرم با دانسیته پایین به قطر  $34 \times 74$  میلی متر در خلف رکتوم و قدام ساکروم گزارش کرد که مطرح کننده تشخیص های احتمالی مثل تراتوم ساکروکوکسیژیال یا به احتمال ضعیف تر تومور استرومایی رکتوم بود؛ اما گزارش هیستوپاتولوژی توده برداشته شده برای بیمار، تشخیص نوروبلاستوم را مطرح کرد و بیمار جهت تکمیل درمان به بیمارستان فوق تخصصی الزهرا اصفهان ارجاع داده شد.

### بحث:

تومورهای نوروژنیک ۱۰٪ تومورهای خلف رکتوم را تشکیل می دهند و از نظر شیوع پس از ضایعات مادرزادی، دومین ضایعات اطراف ساکروم می باشند. این تومورها از اعصاب محیطی منشأ می گیرند و ۸۵٪ آنان خوش خیم هستند. تومورهای نوروژنیک، تومورهای با رشد آهسته اند و ممکن است علائم غیراختصاصی داشته باشند؛ از این رو هنگام تشخیص ممکن است به اندازه قابل توجهی رسیده باشند (۹).

نوروبلاستوم طیف وسیعی از علائم بالینی دارد که به محل، گسترش و ویژگی های بیولوژیکی تومور اولیه و وجود متاستاز دوردست بستگی دارد. اتساع شکم، درد استخوانی منتشر یا حتی شکایاتی از قبیل آرتريت، عوارض و اثرات ناشی از تولید هورمون، درگیری مغز استخوان و یافته های غیر اختصاصی از قبیل کاهش وزن، بی حالی، کم خونی، تب و بی قراری می تواند اتفاق افتد. در نیمی از بیماران با گسترش تومور به نخاع علائم عصبی محیطی و علائمی از تحت فشار قرار گرفتن ریشه عصبی یا نخاع ممکن است روی دهد. علائم انسفالوپاتی ممکن است در کودکان در اثر افزایش فشارخون ناشی از آزاد شدن کاتکولامین ها رخ دهد. متاستاز به چشم یا تحت فشار قرار گرفتن عصب بینایی از طریق گسترش متاستاتیک ممکن است باعث نابینایی شود. در کمتر از ۲٪ موارد نوروبلاستوم ممکن است با سندرم پارانئوپلاستیک بروز کند.

می تواند انجام شود و میزان بقای گزارش شده در سطح بالایی می باشد. اما برعکس، تومورهای غیرقابل برداشت معمولاً نتیجه ضعیف تری دارند، مگر اینکه برداشت کامل ثانویه بتواند انجام شود (۴).

میزان بقای نوروبلاستوما در ایران نیز تا حدودی بررسی شده است. میانگین بقا در ایران ۳۳ ماه بوده است. میانگین بقا در جنس مونث طولانی تر از جنس مذکر است و در بیمارانی که کمتر از ۱ سال سن دارند، بطور مشخص بهتر از سایر بیماران بوده و عدم وجود درگیری متاستاتیک، میزان بقای بیماران را افزایش می دهد. بنابراین اگر بیمار مونث بوده و سن کمتر از ۱ سال داشته باشد و همچنین هیچ گونه متاستاز و درگیری مغز استخوان نداشته باشد، بهترین پیش آگهی را دارد (۵). از عوامل مهم دیگر، منشأ تومور اولیه است. شایع ترین محل شیوع تومور، توده شکمی است. تقریباً نیمی از این تومورها از قسمت مدولای آدرنال منشأ می گیرند (۶، ۷). برخی مطالعات نشان داده اند، هنگامی که تومور از گردن، قفسه سینه یا لگن منشأ گیرد، نسبت به منشأ شکمی پیش آگهی بهتری دارد (۸)؛ لذا با توجه به شرایط سنی بیمار و پیش آگهی مطلوب بیماری برای سنین زیر ۱ سال، تشخیص توده اهمیت به سزایی در درمان بیمار خواهد داشت که در این گزارش موردی به آن اشاره شده است.

### گزارش مورد:

در این مطالعه گزارش موردی، یک شیرخوار ۹ ماهه با شکایت بی قراری، یبوست مزمن، اتساع شکم و احتباس ادراری حاد بستری گردید. همزمان با این علائم استفراغ نیز وجود داشت. بیمار از ۳ روز پیش از پذیرش به عفونت تنفسی فوقانی و از ۳ ماه پیش از آن دچار یبوست شده بود. بررسی های سونوگرافیک، هیدرونفروز و هیدروویورتر دوطرفه در حد خفیف تا متوسط را نشان می داد ولی یک توده هتروژن-هایپواکو با اندازه  $34 \times 75$  میلی متر نمایان بود. برطبق این یافته ها سی تی اسکن شکم و لگن درخواست شد.

نوروبلاستومای ساکروم را در کودک ۲ ماهه گزارش کردند و ادعا کردند اولین گزارش نوروبلاستومای سیستمیک در محل لگنی-قدام ساکروم را ارائه کرده اند (۱۴). در سال ۲۰۰۸ در گزارشی در مورد یک دختر بچه دوماهه که مبتلا به نوروبلاستومای قدام ساکروم بود بر این نکته تاکید داشت که باید نوروبلاستومای کیستیک قدام ساکروم متفاوت از دیگر تومورهای کیستیک ساکروم مورد توجه قرار گیرد (۱۵). لگن یک محل اولیه غیرطبیعی برای نوروبلاستوما است، اما جزء پیش آگهی مطلوب تلقی می شود (۸، ۱۶، ۱۷) که بیش از همه در بیماری های پیشرفته مشهود است (۱۶). در گزارش حاضر نیز یافته های حاصل از سی تی اسکن شکم و لگن یک بافت نرم با دانسیته پایین به قطر ۳۴×۷۴ میلی متر در خلف رکتوم و قدام ساکروم گزارش شد که مطرح کننده تشخیص احتمالی تراتوم ساکروکوکسیژن یا به احتمال ضعیف تر تومور استرومایی رکتوم بود؛ اما گزارش هیستوپاتولوژی توده برداشته شده از بیمار، تشخیص نوروبلاستوم را مطرح کرد.

### نتیجه گیری:

اگرچه مطالعات علمی حاکی از آن است که لگن یک محل اولیه غیرطبیعی برای نوروبلاستوما است؛ اما همواره به دلیل شیوع نوروبلاستوما در کودکان و پیش آگهی مطلوب این بیماری در کودکان زیر ۱ سال این احتمال باید مورد توجه خاص قرار گیرد.

### تشکر و قدردانی:

بدینوسیله از همکاری والدین بیمار مورد گزارش و کلیه کسانی که در نوشتن این گزارش ما را یاری رسانده اند، صمیمانه تشکر و قدردانی می نمایم.

همچنین سندرم آتاکسیک اپسوکلونوس-میوکلونوس یا اسهال آبکی از دیگر مواردی است که دیده می شود. سندرم اپسوکلونوس-میوکلونوس معمولاً در تومورهای قفسه سینه دیده می شود و پیش آگهی بهتری دارد. این یافته ها شایعاً در کودکان مبتلا به نوروبلاستوم با توده شکمی دیده می شوند. یافته های دیگر شامل افزایش فشارخون وابسته به رنین، اختلال عملکرد روده یا مثانه (در توده های لگنی)، تنگی نفس (در توده های قفسه سینه یا توده های بزرگ شکمی و یا کبد که دیافراگم را بالا می برد) و نقایص عصبی یا علائم تحت فشار بودن نخاع می باشند (۱۰). میزان بقا در کودکان مبتلا به نوروبلاستوما متأثر از سن بیمار در زمان تشخیص و شواهد رادیولوژیک متاستازهای استخوانی است که ایجاد کننده پیش آگهی ضعیفی می باشد. از عوامل مهم دیگر، محل منشا تومور اولیه است. برخی مطالعات نشان داده اند، هنگامی که تومور از گردن، قفسه سینه یا لگن منشا می گیرد، نسبت به منشا شکمی پیش آگهی بهتری دارد (۸). کودکان مبتلا ممکن است تظاهرات بالینی متفاوتی در نتیجه بیماری متاستاتیک منتشر یا سندرم های پارانتوپلاستیک مرتبط، در زمان تشخیص داشته باشند. اما شایع ترین تظاهر بالینی این تومور در آنان نیز در توده شکمی است (۱۱). در سال ۱۹۷۴ یک مورد کودک مبتلا به نوروبلاستوم لگنی که با شکایت احتباس حاد ادراری مراجعه کرده بود معرفی شده است (۸). در سال ۲۰۰۴ نیز گزارشی پیرامون نوروبلاستوم لگنی در ۴۷ کودکی که طی ۱۰ سال پیگیری شده بودند ارائه شد (۱۲). در سال ۲۰۱۱ یک مورد کودک پسر ۱ ساله با شکایت تب (۱ ماهه)، تعریق، لوکوسیتوز و ترومبوسیتوز متوسط و توده قابل لمس در حفره ایلیاک چپ گزارش شده است (۱۳). موردی که معرفی شد کودکی بدون اختلال تکاملی بود، که اولین علائم آن استفراغ و یبوست مزمن بوده است. در بررسی های به عمل آمده، توده هایی با محل اولیه در قدام ساکروم نشان داده شد. این محل برای این تومور نادر است (۱۲)، (۱۴). به طوری که در سال ۲۰۰۶ پزشکان یک مورد

**منابع:**

1. Csathy L, Kappelmayer J, Szegedi I, Kajtar B, Kiss C, Hevessy Z. Classical and atypical neuroblastoma-case reports. *J Cytometry B Clin Cytom.* 2011; 80(2): 134-6.
2. Rasmussen A, Muniz AE, King B. Neuroblastoma causing acute urinary retention: a rare presentation. *J Emerg Med.* 2010; 39(5): 602-6.
3. Miele WR, Pfannl R, Kryzanski JT. Primary holocord ganglioneuroblastoma: case report. *J Neurosurg Spine.* 2011; 15(4): 457-63.
4. Rubie H, Coze C, Plantaz D, Munzer C, Defachelles AS, Bergeron C, et al. Localised and unresectable neuroblastoma in infants: excellent outcome with low-dose primary chemotherapy. *Br J Cancer.* 2003; 89(9): 1605-9.
5. Arjmandi Kh, Vossugh P, Seid Sarabi M, Chehrei A. Determination of prognostic factors in survival of children with neuroblastoma. *Razi J Med.* 2002; 9(28): 11-17.
6. Cerullo G, Marrelli D, Rampone B, Miracco C, Caruso S, Di Martino M, et al. Presacral ganglioneuroma: a case report and review of literature. *World J Gastroenterol.* 2007; 13(14): 2129-31.
7. Chu CM, Rasalkar DD, Hu YJ, Cheng FW, Li CK, Chu WC. Clinical presentations and imaging findings of neuroblastoma beyond abdominal mass and a review of imaging algorithm. *J Radiol.* 2011; 84(997): 81-91.
8. Ghazali S. Pelvic neuroblastoma: a better prognosis. *Ann Surg.* 1974; 179(1): 115-118.
9. Neale JA. Retrorectal Tumors. *Clin Colon Rectal Surg.* 2011; 24(3): 149-60.
10. Papaloannou G, McHugh K. Neuroblastoma in childhood: review and radiological findings. *Cancer Imaging.* 2005; 5(1): 116-27.
11. Chu CM, Rasalkar DD, Hu YJ, Cheng FWT, Li C K, Chu WCW. Clinical presentations and imaging findings of neuroblastoma beyond abdominal mass and a review of imaging algorithm. *Br J Radiol.* 2011; 84(997): 81-91.
12. Leclair MD, Hartmann O, Heloury Y, Fourcade L, Laprie A, Mechinaud F, Munzer C, Rubie H. Localized pelvic neuroblastoma: excellent survival and low morbidity with tailored therapy--the 10-year experience of the French Society of Pediatric Oncology. *J Clin Oncol.* 2004; 22(9): 1689-1695.
13. Alessi S, Grignani M, Carone M. Ganglioneuroblastoma: case report and review of the literature. *J Ultrasound.* 2011; 14(2): 84-88.
14. D'Alessio A, Piro E, Beretta F, Abati L, Brugnani M, Assi A, et al. Presacral cystic neuroblastoma: case report and review of the literature. *J Pediatr Hematol Oncol.* 2006; 28(8): 534-6.
15. Watanabe M, Komuro H, Kaneko M, Hori T, Tatekawa Y, Kudo S, et al. A rare case of presacral cystic neuroblastoma in an infant. *J Pediatr Surg.* 2008; 43(7): 1376-1379.
16. Haase GM, O'Leary MC, Stram DO, Lukens JN, Seeger RC, Shimada H, et al. Pelvic neuroblastoma--implications for a new favorable subgroup: a children's cancer group experience. *Ann Surg Oncol.* 1995; 2(6): 516-23.
17. Cruccetti A, Kiely EM, Spitz L, Drake DP, Pritchard J, Pierro A. Pelvic neuroblastoma: low mortality and high morbidity. *J Pediatr Surg.* 2000; 35(5): 724-8.

## **A case report of primary presacral neuroblastoma in a 9-month infant**

Panahandeh GR<sup>1\*</sup>, Taheri AM<sup>2</sup>, Motamedi A<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Medical Plants Research Center, Shahrekord University of Medical Sciences, Shahrekord, Iran;

<sup>2</sup>Radiology Dept., Shahrekord University of Medical Sciences, Shahrekord, Iran;

<sup>3</sup>Student Research Commission, Shahrekord University of Medical Sciences, Shahrekord, Iran.

Received: 17/Aug/2012 Accepted: 1/June/2013

**Background and aims:** Neuroblastoma is the most prevalent dense tumor in children. In fact, approximately 1/3 of neuroblastoma cases are diagnosed in under one-year infants; but tumors which primarily located in anterior sacrum are rare. Therefore, a primary presacral neuroblastoma in a 9-month infant is reported to inform physicians and therapeutical teams.

**Case report:** A 9-month infant with malaise, chronic constipation, abdominal distension, and acute urinary retention was hospitalized. Meantime, there was vomiting too. The patient had been suffering from upper respiratory infection since three days ago, and from constipation for 3 months. Sonographic examination indicated mild to moderate hydronephrosis and duplex hydroureter, but a heterogeneous-hypoactive mass of 34×75 mm was clear. CT scan indicated a soft tissue with low density, diameter of 34×75 mm in anterior rectum and posterior sacrum, suggesting sacrococcygeal teratoma or less probably stroma tumor of rectum. Histological report of the mass removed from the patient indicated neuroblastoma diagnosis and the patient was referred to subspecialty Hospital of Al-Zahra to complete the treatment.

**Conclusion:** Histological report of the mass removed from the patient indicated primary presacral neuroblastoma. Therefore, although the most prevalent clinical indication of this tumor is abdominal mass and the reported case is rare, the physicians should consider this case in their diagnoses.

**Keywords:** Infant, Primary presacral neuroblastoma, Sacrococcygeal teratoma.

**Cite this article as:** Panahandeh GR, Taheri AM, Motamedi A. A case report of primary presacral neuroblastoma in a 9-month infant. J Shahrekord Univ Med Sci. 2014; 16(2): 121-125.

---

**Corresponding author:**

Medical Plants Research Center, Shahrekord University of Medical Sciences, Shahrekord, I.R.  
Iran. Tel:+983813340800, Gmail:gholamrezapanahandeh@gmail.com