

**T.C. SAĞLIK BİLİMLERİ ÜNİVERSİTESİ, İSTANBUL ZEYNEP
KAMİL KADIN VE ÇOCUK HASTALIKLARI SAĞLIK
UYGULAMA VE ARAŞTIRMA MERKEZİ**

ÇOCUK CERRAHİSİ KLİNİĞİ

**TERATOMLARIN RETROSPEKTİF
DEĞERLENDİRMESİ VE SAKROKOKSİGEAL
TERATOMLARDA POSTNATAL PROGNOZUN
ÖNGÖRÜLMESİ**

Dr. Burcu Arı

İSTANBUL-2019



T.C. SAĞLIK BAKANLIĞI
İSTANBUL
İL SAĞLIK MÜDÜRLÜĞÜ
Sağlık Bilimleri Üniversitesi
Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları
Eğitim ve Araştırma Hastanesi



**T.C. SAĞLIK BİLİMLERİ ÜNİVERSİTESİ, İSTANBUL ZEYNEP
KAMİL KADIN VE ÇOCUK HASTALIKLARI SAĞLIK
UYGULAMA VE ARAŞTIRMA MERKEZİ**

ÇOCUK CERRAHİSİ KLİNİĞİ

**TERATOMLARIN RETROSPEKTİF
DEĞERLENDİRMESİ VE SAKROKOKSİGEAL
TERATOMLARDA POSTNATAL PROGNOZUN
ÖNGÖRÜLMESİ**

Dr. Burcu Arı

Tez Danışmanı: Prof. Dr. Ayşenur Celayir

(UZMANLIK TEZİ)

İSTANBUL-2019

TEŞEKKÜR

Çocuk Cerrahisi uzmanlık eğitimim boyunca büyük emekleri olan, bilgi ve tecrübelerini sevgi ve sabırla bize aktaran başta klinik şefimiz, değerli hocam ve tez danışmanım Prof. Dr. Ayşenur Cerrah Celayir'e,

Asistanlığımın ilk yıllarında klinik bilgi ve deneyimlerini sabırla aktaran değerli şef yardımcımız Op. Dr. Osman Zeki Pektaş'a,

Uzun eğitim dönemi süresince, bilgi ve deneyimlerini paylaşarak iyi bir hekim olmam için gayret sarfeden, her konuda yardımlarını esirgemeyen Doç. Dr. Oktav Bosnalı ve Doç. Dr. Serdar Morahoğlu'na, uzmanlarımız Op. Dr. A. Koray Pelin, Op. Dr. Şefik Çaman, Op. Dr. Olga Devrim Ayvaz, Op. Dr. Cengiz Gül'e,

Birlikte çalışmaktan büyük mutluluk duyduğum, bilgi ve tecrübelerimi borçlu olduğum Dr. Ceren Özmen, Dr. Sabri Cansaran, Dr. Naime İpek Atay, Dr. Tuba Erdem ve her zaman dostluklarını özleyeceğim Dr. Emel Çolak, Dr. Sırma Mine Tilev, Dr. Tuğçe Merve Orbay, Dr. Gözde Tuğçe Gülseven, Dr. Bekir Erdev ve Dr. Gülce Kadakal'a,

Yoğun çalışma saatlerinde güler yüzlerini eksik etmeyip desteklerini gördüğüm Işıl Aksu'ya, başta servis sorumlu hemşireleri Sibel Ermurat ve Gül Dereci'ye, ameliyathane sorumlu hemşireleri Nuray Yayla ve Lilay Şen'e, yoğun bakım, servis ve ameliyathanede emek veren diğer tüm hemşire, teknisyen ve personel arkadaşlara,

Uzmanlık eğitimime katkılarından dolayı hastane yönetimi/başhekimliği ve tüm diğer klinik hekimlerine,

Hayatım boyunca maddi ve manevi desteklerini aldığım, her zaman yanımda olan ve beni bugünlere getiren annem Zeliha ve babam Raşit Arı'ya, ağabeylerim Serhat ve Beykan Arı'ya,

Asistanlığımın en yorucu sürecinde desteğini esirgemeyen ve yanımda olan Buğra Erdem'e sonsuz teşekkürlerimi sunarım...

Dr. Burcu Arı

İÇİNDEKİLER

TEŞEKKÜR.....	i
KISALTMALAR	iv
TABLO VE GRAFİK DİZİNİ.....	v
ÖZET.....	vi
SUMMARY	vii
1. GİRİŞ VE AMAÇ	1
2. GENEL BİLGİLER.....	3
2.1. Tanımlama	3
2.2. Etyopatogenez.....	3
2.3. Embriyoloji.....	3
2.4. Histopatoloji	4
2.4.1. Matür/İmmatür Teratom	4
2.5. İsimlendirme ve Sınıflandırma	4
2.5.1. Baş/Boyun Teratomları.....	6
2.5.1.1. Servikofasyal Teratom	6
2.5.1.2. Oronazofarengeal Teratom.....	6
2.5.2. Mediastinal/Torakal Teratom.....	7
2.5.3. Retroperitoneal/Abdominal Teratom.....	7
2.5.3.1. Gastrik Teratom	7
2.5.4. Sakrokoksigeal Teratomlar	8
2.5.4.1. Etyoloji	8
2.5.4.2. Sınıflandırma	9
2.5.4.3. Histopatoloji.....	9
2.5.4.4. Tanı.....	10
2.5.4.5. Ayırıcı Tanı.....	10
2.5.4.6. Eşlik Eden Anomaliler	10
2.5.4.7. Tedavi.....	11
2.5.4.8. Cerrahi Teknik.....	11
2.5.4.9. Postoperatif Bakım.....	13
2.5.4.10. Kemoterapi.....	13
2.5.4.11. Postoperatif Takip	13
2.5.4.12. Prognoz.....	13

3. GEREÇ VE YÖNTEM.....	15
4. BULGULAR.....	17
5. TARTIŞMA.....	25
6. SONUÇ.....	39
7. KAYNAKÇA.....	58



KISALTMALAR

AFP	: Alfa Fetoprotein
ANA	: Anti-nükleer antikor
β -HCG	: Beta Human Koryonik Gonadotropini
BT	: Bilgisayarlı Tomografi
CA	: Kanser antijeni
CEA	: Karsinoembriyonik antijen
CRP	: C-reaktif protein
ES	: Eritrosit Süspansiyonu
EXIT	: Ex Utero Intrapartum Treatment (Tedavi)
LAP	: Lenfadenopati
LDH	: Laktat dehidrogenaz
MRG	: Manyetik Rezonans Görüntüleme
OEIS	: Omfalosel-ekstrofi-imperfore anüs-spinal defekt
PKOS	: Polikistik Over Sendromu
Pn	: Postnatal
PSARP	: Posterior Sagittal Anorektoplasti
SKT	: Sakrokoksigeal Teratom
sT3 – sT4	: Serbest T3 - T4
TDP	: Taze Donmuş Plazma
TFR	: Tümör volümü/fetal ağırlık oranı
TS	: Trombosit Süspansiyonu
TSH	: Tiroid Stimülan Hormon
US	: Ultrason
VUR	: Vezikoüreteral Reflü

TABLO VE GRAFİK DİZİNİ

Tablo 1: Teratomların genel özellikleri, ortalama laboratuvar değerleri ve histopatolojik tanıya göre dağılımları	41
Tablo 2: Teratomların anatomik bölgelere ve cinsiyete göre dağılımları	42
Tablo 3: Teratomların lokalizasyonuna göre başvuru şikâyetleri	43
Tablo 4: Teratomların lokalizasyonuna göre taraf yerleşimleri.....	44
Tablo 5: Baş-boyun teratomlarının genel özellikleri.....	45
Tablo 6: Gonadal teratomların genel özellikleri	46
Tablo 7: Sakrokoksigeal teratomların genel özellikleri	47
Tablo 8: Sakrokoksigeal teratomların tiplendirmesi, operasyon şekli ve kitle özellikleri	48
Tablo 9: Sakrokoksigeal teratomlu olgularda eşlik eden hastalıklar.....	49
Tablo 10: Sakrokoksigeal teratomlu olgularda postoperatif komplikasyonlar ve takip özellikleri.....	50
Tablo 11: Teratomların histopatolojik değerlendirme sonuçları	51
Tablo 12: Kaybedilen sakrokoksigeal teratomlu olgularının demografik ve klinik özellikleri	52
Tablo 13: Teratomların histopatolojik özelliklerine göre cinsiyet, yaş ve bölge dağılımları.....	53
Tablo 14: Yenidoğan döneminde opere edilmiş olan sakrokoksigeal teratomlu kaybedilen ve yaşayan olguların doğum ve kitle özelliklerine göre ortalama değerlerinin karşılaştırması	54
Tablo 15: Yenidoğan döneminde opere edilmiş olan sakrokoksigeal teratomlu olguların ortalama doğum haftası, doğum kilosu, kitle ağırlığı-volumü, kitle volüm/doğum ağırlığı ve kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranlarının mortalite ile ilişkisi.....	55
Tablo 16: Yenidoğan döneminde opere edilmiş olan sakrokoksigeal teratomlu olguların kan transfüzyonu ile mortalite ilişkisi	56
Grafik 1: Teratomların anatomik bölgelere ve cinsiyete göre dağılımları	57

ÖZET

TERATOMLARIN RETROSPEKTİF DEĞERLENDİRMESİ VE SAKROKOKSİGEAL TERATOMLARDA POSTNATAL PROGNOZUN ÖNGÖRÜLMESİ

Giriş/Amaç: Teratomlar, çocuklarda en sık rastlanan germ hücreli tümörlerdir. Erken embriyonik hücrelerden kaynaklanmaları sebebiyle gerçek anlamda konjenital bir tümördür ve klasik olarak ektoderm, mezoderm ve endoderm olmak üzere her 3 embriyonik germ tabakasına ait dokular içerir. Bu çalışmada, kliniğimizde tedavi edilen teratom olgularının değerlendirilmesi ve sakrokoksigeal teratomlu yenidoğanların sağkalımını etkileyen faktörlerin ve prognoz üzerine etkilerinin belirlenmesi amaçlandı.

Materyal/Method: Ocak 2004 – Temmuz 2019 yılları arasında kliniğimizde teratom tanısı ile opere edilen olguların demografik özellikleri, laboratuvar sonuçları, kitle görüntüleme bulguları, ameliyat bulguları, patoloji sonuçları ve nihai sonuçlarına ait veriler retrospektif olarak değerlendirildi.

Bulgular: 68 teratomlu hastanın 51'i (%75) kız, 17'si (%25) erkekti. 33 yenidoğan olgunun 25'i (%75,7) prenatal tanılı idi. Tüm olgular içerisinde, teratom kitlesi 3 olguda (%4,4) baş boyun, 1 olguda (%1,4) torakoabdominal, 24 olguda (%35,2) gonadal, 2 olguda (%2,9) retroperitoneal ve 38 olguda (%55,8) sakrokoksigeal yerleşimliydi. Histopatoloji sonuçları 54 olguda (%79,4) matür teratom, 12 olguda (%17,6) immatür teratom, 2 olguda (%2,9) ise malignite uyumluydu. Sakrokoksigeal teratomlu olguların 29'u (%76,3) yenidoğandı; 5 olgu (%17,2) postoperatif erken dönemde, baş boyun teratomlu 2 olgu (%66,6) postnatal ilk saatlerde olmak üzere teratom olgularının toplam %10,2'si kaybedildi. 29 hastadan oluşan sakrokoksigeal teratomlu yenidoğan grubunda kaybedilen ve yaşayan hastaların sırası ile ortalama doğum haftası 33,1 hafta ve 37 hafta, ortalama kitle volümü 1780 ml ve 430 ml, ortalama kitle ağırlığı 2866 gr ve 706 gr, ortalama kitle volümü/doğum ağırlığı oranı 0.37 ve 0.09, ortalama kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranı 0.57 ve 0.15 idi.

Sonuç: Baş boyun bölgesi veya sakrokoksigeal teratom olguları mortal seyredebilmektedir. Sakrokoksigeal teratomlu yenidoğanlarda, ortalama kitle volümü/doğum ağırlığı ve kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranlarına göre belirlenecek eşik değerlerin prognostik faktör olarak öngöründe bulunmak için kullanılabileceği saptandı.

Anahtar kelimeler: Mortalite, prognoz, sakrokoksigeal teratom, teratom, yenidođan.



SUMMARY

RETROSPECTIVE EVALUATION OF TERATOMAS AND PREDICTION OF POSTNATAL PROGNOSIS IN SACROCOCCYGEAL TERATOMAS

Introduction/Aim: Teratomas are the most common germ cell tumors in children. It is a truly congenital tumor due to its origin from early embryonic cells and contains tissues belonging to all three embryonic germ layers, classically ectoderm, mesoderm and endoderm. In this study, we aimed to evaluate the teratoma cases treated in our clinic and to determine the prognostic factors and factors affecting the survival of newborns with sacrococcygeal teratomas.

Material/ Method: Demographic characteristics, laboratory results, mass imaging findings, surgical findings, pathology results and final results of the patients who were operated with teratoma between January 2004 and July 2019 were evaluated retrospectively.

Results: Of 68 patients with teratomas, 51 (75%) were female and 17 (25%) were male. 25 (75,7%) of 33 newborns were prenatally diagnosed. In all cases, the teratoma mass was head and neck in 3 (4,4%), thoracoabdominal in 1 (1,4%), gonadal in 24 (35,2%), retroperitoneal in 2 (2,9%) and 38 (55,8%) were sacrococcygeal. Histopathology results were mature teratoma in 54 (79.4%), immature teratoma in 12 (17.6%), and malignancy in 2 (2.9%) patients. 29 (76,3%) of the cases with sacrococcygeal teratoma were newborn; 5 (17,2%) patients died in the early postoperative period and 2 (66,6%) patients with head and neck teratomas were lost in the first postnatal hours. In the died and living newborn group of 29 patients with sacrococcygeal teratoma; respectively the mean birth week was 33,1 weeks and 37 weeks, the mean mass volume was 1780 ml and 430 ml, the mean mass weight was 2866 gr and 706 gr, the mean mass volume/birth weight ratio was 0.37 and 0.09, the mean mass weight/birth weight ratio was 0.57 and 0.15.

Conclusion: Head and neck region or sacrococcygeal teratoma cases may have a mortality. In newborns with sacrococcygeal teratoma, it was determined that the threshold value to be determined according to the mean mass volume/birth weight and mass weight/birth weight ratios can be used as a prognostic factor.

Key words: Newborn, mortality, sacrococcygeal teratoma, prognostic factor, teratoma.



1. GİRİŞ VE AMAÇ

Teratomlar, çocuklarda en sık rastlanan germ hücreli tümörlerdir. Erken embriyonik hücrelerden kaynaklanmaları sebebiyle gerçek anlamda konjenital bir tümördür ve klasik olarak her 3 embriyonik germ tabakasına ait dokular içerir. Bunlar, ektoderm (çok katlı yassı epitelyum, sinir dokusu), mezoderm (kas, diş, kemik, kıkırdak dokuları) ve endoderm (müköz bezler, sindirim ve solunum sistemi mukozaları) kaynaklı dokulardır.

Teratomlar genellikle dışarıdan görülen kitle sebebiyle prenatal ya da yenidoğan döneminde tanı alırlar. Geç başvuran olgularda ise kitle genellikle basıya bağlı semptomlar ile bulgu vermektedir. Hastalar karın ağrısı, şişkinlik, kabızlık ya da idrar yapmada zorlanma gibi geç dönem semptomları ile başvurabilirler.

Teratomların tanısında hasta öyküsü ve dikkatli fizik muayene, özellikle rektal tuşe ile presakral alanın değerlendirilmesi önemli olmakla birlikte, özellikle dışarıdan görülmeyen kitlelerde düz karın grafisindeki kalsifikasyon, kemik-diş benzeri yapılar; ultrason, doppler ultrason, Bilgisayarlı Tomografi (BT) ve Manyetik Rezonans Görüntüleme (MRG) tanı konulmasında yardımcı olmaktadır. Kesin tanı ise kitlenin eksize edilmesi sonrası histopatolojik inceleme ile konulmaktadır. Teratomlar histolojik olarak matür, immatür ve malign olarak sınıflandırılmaktadır. Teratomların tedavisi kitlenin total olarak eksizyonudur.

Totipotansiyel hücrelerden kaynaklanmaları sebebiyle sakrokoksigeal, gonadal, mediastinal, retroperitoneal, servikal ve intrakranial bölgelerde yerleşebilmektedirler. Çoğu kız hastalarda görülmektedir (4:1), malignite ise erkek hastalarda daha sıktır. Teratomların görülme sıklığı yerleştikleri bölgelere göre değişiklik göstermektedir.

Sakrokoksigeal teratom çocuklarda teratomun en sık görülen tipidir ve yenidoğanların en sık görülen konjenital tümörüdür. Görülme sıklığı 1/35.000-40.000 canlı doğumdur. Olguların %75-80'i kız çocuklarda görülür. %50-80 bebekte koksiks üzerinde dışarıdan görülebilen ekzofitik bir kitle mevcuttur. Sakrokoksigeal teratomlar tümörün lokalizasyonuna göre Altman sınıflaması ile 4 tipe ayrılmaktadır. Tip I'den Tip IV'e doğru teratomlar tamamen dışarıda yerleşen bir kitleden, lezyonun dışarıdan hiç görülmediği bir kitleye kadar değişmektedir. Geç tanı alan olgular ise sıklıkla Tip IV teratomdur ve konstipasyon, karın ağrısı, ağırlı miksiyon, pubik bölgede şişlik,

bacaklarda güçsüzlük gibi şikâyetlerle başvurmaktadırlar. Tedavisi ise total kitle eksizyonu ile birlikte koksiksin çıkarılmasıdır.

Ocak 2004 – Temmuz 2019 arasında Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Sağlık Uygulama ve Araştırma Merkezi, Çocuk Cerrahisi Kliniği'nde teratom tanısı ile opere edilen olgular retrospektif olarak tarandı; bölgesel dağılımları, görülme sıklıkları, yerleştikleri bölgelere göre özellikleri, prognozlarına dair verilerin toplanması ve sakrokoksigeal teratomlarda mortaliteyi etkileyen faktörlerin saptanması amaçlandı.



2. GENEL BİLGİLER

2.1. Tanımlama:

Teratom terimi, 1869'da Rudolph Virchow tarafından eski Yunancadaki teratos; canavar ve onkoma; şişlik kelimelerinden türetilmiştir (1). Teratomun histogeneziyle ilgili başka teoriler de olmasına rağmen en fazla kabul görmüş olanı teratomun primordial germ hücrelerden köken aldığını kabul eden "germ hücre teorisi"dir. Bu nedenle teratom germ hücreli tümörler başlığı altında incelenir (2).

Pediyatrik germ hücreli tümörler nadir görülen tümörlerdir ve yerleşimleri, çeşitli klinik prezentasyonları sebebiyle spesifiktirler. Bu tümörlerin yaklaşık olarak %20'si maligndir, çocukluk çağı ve adolesan dönem malign tümörlerinin %1-3'ünü oluştururlar (3,4).

2.2. Etyopatogenez:

Teratomlar en sık görülen germ hücreli tümörlerdir ve embriyonik germ tabakalarından bir ya da daha fazlasından oluşmakta ve orijin aldığı anatomik bölgeden farklı doku içermektedir (5). Teratomlar genellikle orta hatta kendini gösteren tümörlerdir. Sakrokoksigeal bölge (%50-60) ve gonadlar (%30) en sık görüldüğü yerlerdir. Daha nadiren mediasten, retroperiton, boyun, nazofarenks, mide ve beyinde görülürler (6). Çocuklarda daha çok ekstraponadal yerleşim göstermekte iken, yetişkinlerde sadece %10'u ekstraponadal bölgededir (7).

2.3. Embriyoloji:

Embriyolojik olarak; fetusta ektoderm (çok katlı yassı epitel, sinir dokusu), mezoderm (kas, diş, kemik ve kıkırdak dokuları) ve endoderm (sindirim sistemi, solunum sistemi mukozaları, müköz bezler) olmak üzere 3 germ tabakası mevcuttur. Primordial germ hücreleri 4. haftada embriyonal yolk sak endoderminin allantois yakınından oluşmaktadır; midline dorsal mezenter boyunca genital çıkıntıya doğru göç etmekte ve bu hareketi 6. haftada tamamlamaktadır (8).

Primordial germ hücrelerinin anormal ya da ilerlemeyen göçü hücrelerin sakrokoksigeal, retroperitoneal bölge, mediastinum ve pineal glandda birikimine sebep olmaktadır. Bu bölgelerde biriken primordial germ hücrelerinin çoğalmasının ekstraponadal germ hücreli tümör gelişmesine neden olduğu varsayılmaktadır.

İlerlemeyen göçün normal yol üzerinde ekstragonadal (retroperiton) birikim ile sonuçlandığı düşünülmektedir, aberran göç ise diğer ekstragonadal alanlarda (pineal, sakrokoksigeal) birikime sebep olmaktadır (9).

2.4. Histopatoloji:

Histolojik olarak, hücre diferansiyasyonuna göre matür ve immatür olarak iki grupta incelenir (10). %70'i matür teratomlardır; immatür teratomların %20'si embriyonik komponentli immatür teratomlar, %10'u ise malign komponentli immatür teratomlardır. Matür teratomlar iyi diferansiye dokular içermekte iken immatür teratomlar nöroektoderm ve 1-3 arası evrelendirilen düşük güçteki primitif nöroepitelyum alanları içermektedir (2,11).

2.4.1. Matür/İmmatür Teratom:

Teratomlar, bulundukları organ veya anatomik bölgeye yabancı doku elementlerinden oluşan bir neoplazmlar grubudur (12). Klasik olarak, bu tümörlerin üç germ katmanından gelişen dokulardan oluştuğu kabul edilir: ektoderm, mezoderm ve endoderm. Ancak her üç germ tabakasının her tümörde bulunması gerekmez. Bu tümörler diferansiyasyonlarına göre matür ve immatür teratom olarak sınıflandırılır (2). Bir teratom içinde somatik bir malignitenin gelişmesi çocukluk çağında nadir görülen bir olaydır ve totipotent embriyonal hücrelerden ziyade, farklılaşmış teratomatöz elementlerden meydana geldiği düşünülmektedir.

Matür ve immatür teratomlar benign lezyonlar olarak düşünülmektedir ancak immatür teratomlarda iyi differansiye olmamış dokudan malign tümör çıkma potansiyeli yüksektir (13). Son çalışmalarda 3 yıllık sağkalım oranı %93 saptanmıştır.

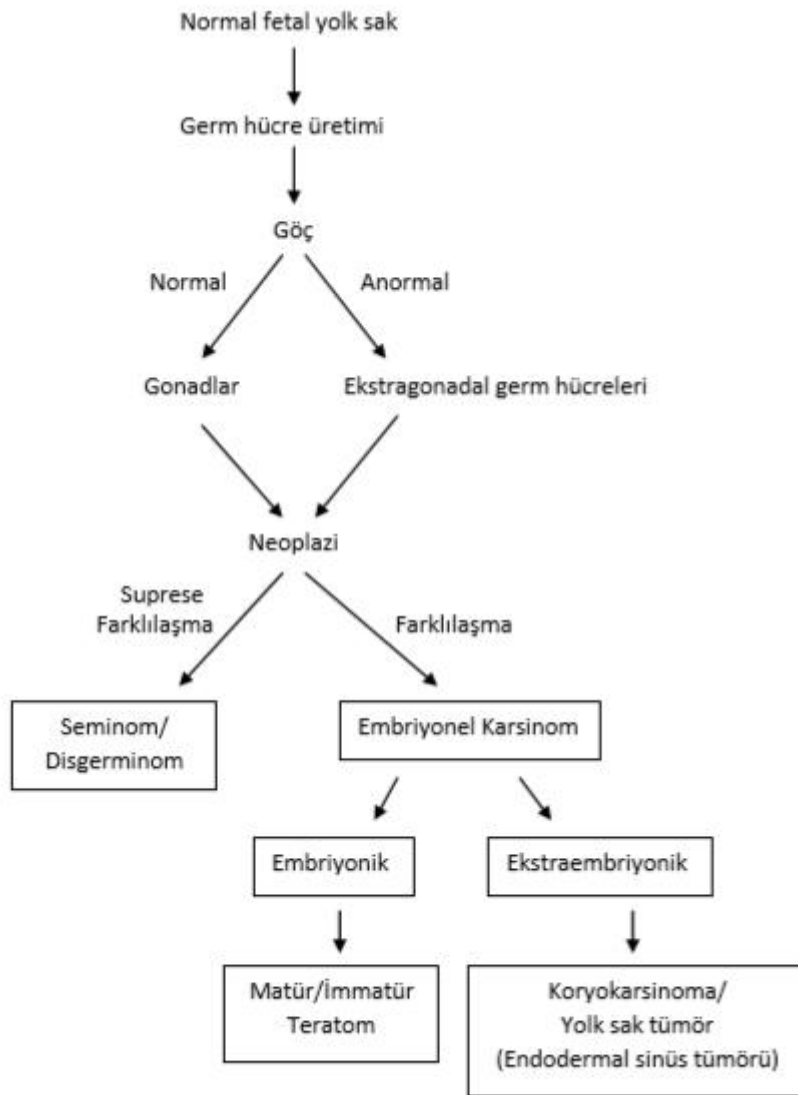
2.5. İsimlendirme ve Sınıflandırma:

Genellikle köken aldıkları organ veya bölgeye göre isimlendirilen teratomların bulundukları bölgeye göre semptomları, klinik bulguları ve seyirleri farklı olduğu için baş/boyun teratomları, mediasten/toraks teratomları, abdominal/retroperitoneal teratomlar, gonadal teratomlar, sakrokoksigeal teratomlar, ekstremitte teratomları başlıkları altında değerlendirilirler (14,15).

Primordial germ hücrelerinin hindgut duvarı ve dorsal mezenter boyunca genital çıkıntılara doğru göçünü normal şekilde tamamlaması ile gonadlar oluşmaktadır.

Gonadal germ hücrelerin malign transformasyonu durumunda seminom/disgerminom görülmektedir.

Germ hücre göçünün normal yolak üzerinde duraksaması ya da anormal yol izlemesi halinde ekstragonadal bölgeye yerleşen germ hücrelerinin neoplastik diferansiyasyonu embriyonel karsinom şeklinde sonuçlanmaktadır. Embriyonel karsinomlar ise embriyonik doku içermesi halinde matür/immatür teratom, extraembriyonik doku içermesi halinde ise koryokarsinom/yolk sac tümörü olarak isimlendirilmektedir (16) (Şekil 1).



Şekil 1: Germ hücreden orjin alan tümörlerin histogenezisi

Embriyonel karsinom yoğun pleomorfik çekirdeğe sahip primitif epitelyal hücrelerden oluşan farklı tabakalar, glandlar ve papiller yapılar göstermektedir. %10'u saf embriyonel tümörlerdir (17). Sıklıkla diğer germ hücreli tümörlerle birlikte bulunur ve miks germ hücreli tümör olarak adlandırılır. Nispeten nadir görülen izole bir germ hücreli tümör olan embriyonel karsinom geniş nekrozu olan bir anaplastik karsinomu andırabilir (18).

2.5.1. BAŞ/BOYUN TERATOMLARI

2.5.1.1. Servikofasyal Teratom

Oldukça nadir görülürler ve teratomların %5-6 sını oluştururlar (19). Neonatal dönemde geniş tümörler olarak prezente olurlar ve %20 malignite gösterirler. Havayolu obstrüksiyonu sebebiyle yenidoğanlarda entübasyon ile EXIT, trakeostomi ve plasental destek altında rezeksiyon gerektirebilir.

Ayırıcı tanıda baş boyun LAP ve kitleleri ile konjenital guatr düşünülmelidir. Direkt grafide teratom içinde kalsifikasyonlar görülebilir. Ultrason, kistik lenfanjiom ayırıcı tanısında faydalıdır. Ancak kistik teratom ile karışabileceği daima akılda tutulmalıdır. Bu durumda AFP'nin bir hafta arayla alınması ile AFP değeri düşüyorsa kistik lenfanjiom lehine değerlendirilir, aksi takdirde lezyonun elimine edilmesi gereklidir (20).

2.5.1.2. Oro Nazofaringeal Teratom

Bu teratomlar orofarenks veya nazofarenksten kaynaklanır. 3 tipi vardır; Tip I'de dermoid kistler yer alır. Üzeri normal deriyle kaplıdır, ancak içinde kıl bulunabilir ve saplıdır. Ektodermal ve mezodermal yapılar içerirler. Tip II'de her üç germ yaprağı da vardır, Tip I'den daha büyüktür, kranial deformasyonlar Tip II'ye eşlik eder. Tip III iyi differansiye olmuş teratomlardır. Organ görüntüsü verebilir, sıklıkla dış arkusu kaynaklıdır. *Epulis* veya *Epignathus* olarak da adlandırılır (21).

Tip II ve Tip III'e ek anomaliler eşlik eder. Büyük boyutta olanları ağızdan dışarıya taşabilir. Antenatal dönemde tanısı konan hastalarda doğum sırasında göbek kordonu kesilmeden, bebeğin spontan nefes almasından önce tümörü çıkartmak ve solunum yolunu açmak, yapılamıyorsa trakeostomi açmak gerekebilir.

2.5.2. MEDIİASTİNAL/TORAKAL TERATOM

Teratomların en çok yerleştiği ikinci bölge mediastendir. Tipik olarak ön mediastende yerleşirler ve timusa yapışık veya komşudur. Çok nadir olarak miyokard ve perikard içinde de bildirilmiştir (22). Çocukluk çağında nöroblastomdan sonra toraksta rastlanan ikinci sıklıktaki tümördür. En sık 3 yaş civarında görülür. Mediastinal germ hücreli tümörler yetişkinlerde tüm mediastinal tümörlerin %15'ini, çocuklarda %24'ünü oluşturur (23). Ayırıcı tanıda lateral grafide tümöral kitlenin ön mediastende olması nöroblastomdan kolaylıkla ayrılmasını sağlar. Torakal BT yapılması tanı ve ayırıcı tanı için gereklidir (24). Tedavisi patoloji benign ise cerrahi yeterlidir, malign lezyonlarda prognoz kötüdür.

2.5.3. RETROPERİTONEAL/ABDOMİNAL TERATOM

Retroperitoneal bölgenin nöroblastom ve Wilms tümöründen sonra en sık rastlanan üçüncü tümörüdür (25). Solda görülme oranı sağa nazaran 2 kat fazladır (26). İntrarenal veya ekstrarenal görülebilir. İntrarenal olanı Wilms tümörüyle karıştır ve tanı ancak patolojide konulabilir (27). Ekstrarenal olanlar böbreğin üst polünde yerleşip nöroblastom gibi böbreği aşağı itebilirler. Ekstrarenal olanların renal kitlelere oranla kolay disseke edilip rahat çıkartılabilmesi mümkündür.

Direkt karın grafisinde dış ya da kemik görüntüsü tanıya yardımcı olur. Grafilerde sadece kalsifikasyon görülmesi, Wilms tümörü veya Nöroblastomda da görülebileceğinden ayırıcı tanıda faydası yoktur ve BT yapılması gereklidir (28).

Retroperitoneal teratomların %10'dan daha azı malignite gösterir. Bazıları çok iyi differansiye olup çocuğun karnında bir ikizi varmış gibi görüntü verebilir. Buna 'fetus in fetu' denir, ancak *Fetus in fetu* diyebilmek için teratoid kitlede en az 2 vertebral kemiğin bulunması gerekir. *Fetus in fetu*'da BT ile tanı konulur, ancak kesin tanısı histopatolojik olarak yapılır (29).

2.5.3.1. Gastrik Teratom

Çok nadirdir. Genellikle ilk birkaç ay içinde batin distansiyonu, kanama ya da gastrik çıkış obstrüksiyonu semptomları ile prezente olur. Olguların %95'i erkek bebeklerde görülür ve %90'ı büyük kurvaturda yerleşmiştir. Fizik muayenede epigastriumda kitle palpe edilebilir (30). Tedavisi kitlenin total rezeksiyonu ile birlikte total/parsiyel gastrektomidir (31).

2.5.4. SAKROKOKSİGEAL TERATOMLAR

Görülme sıklığı yaklaşık 1/35.000-40.000 canlı doğumdur (22). Yenidoğanda kız/erkek oranı 4:1'dir (30). Genellikle yenidoğanda; in utero tanı alan ya da doğumda saptanan geniş, ağırlıklı olarak ekzofitik lezyonlar olarak presente olmaktadır ve nadiren maligndir.

İnfanlar ve çocuklarda ise öncelikle gizlenmiş pelvik tümör olarak ve daha yüksek malignitede görülmektedir (32). Sakrokoksigeal teratom yenidoğanın en sık görülen ekstragonadal tümörüdür ve tüm çocukluk çağı teratomları arasında %40-70 kadarını oluşturmaktadır (13).

Yenidoğanda tipik prezentasyonu sakral bölgeden protrüde olan kitle şeklindedir ve prenatal ultrason ile tanı konulabilir. Eksternal kitle 5 cm'den büyük ise rüptür ve distosiden kaçınmak için sezaryen ile doğum yaptırılmalıdır (33).

Prenatal dönemde polihidroamniyoz, plasentomegali ve hidrops fetalis olması kötü prognostik faktörlerdir. Kitleye bağlı olarak gelişen in utero şant, fetal hidropsa sebep olabilmekte ve yüksek mortalite ile seyretmektedir (34). Prenatal tanı almış, kitlenin çoğunlukla kistik ve 10 cm altında olduğu olgularda %100 yaşam şansı olduğu, ancak 10 cm üzeri kitlelerde artmış vaskülerite, vasküler çalma sendromu ya da kitlenin hızlı büyümesi ve rüptürü sebebiyle yaşam şansının sadece %48 olduğu saptanmıştır (35).

Prenatal tanısı olmayan ve dışarıdan görülebilen bir kitlesi olmayan infanlar ve çocuklar ise (Altman Tip IV gibi) tipik mesane ya da rektum basısı semptomları; konstipasyon, kolon obstrüksiyonu, üriner retansiyon, abdominal kitle ya da malignite semptomları, gelişim geriliği benzeri şikâyetler ile prezente olmaktadır (36).

2.5.4.1. Etyoloji:

Presakral lezyonların oluşumunda tamamlanmamış göç teorisi etyolojik sebeplerden biri olarak gösterilmektedir (37). Postsakral lezyonlar; Hensen nodu (embriyonik gelişimin primer organizatörleri olan totipotent hücrelerin birikimini içeren midline primitiv çizgi) kalıntısından orijin alır. Bu nod posterior embriyodan kaudale doğru göç eder ve sonunda koksiksin önünde kalır, normalde 3. haftanın sonunda da kaybolur (13).

Tamamlanmamış eşleşme teorisine göre vakaların %57'sinde otozomal dominant kalıtım ile ailesel bağlantı bulunmaktadır (38).

2.5.4.2. Sınıflandırma:

Sakrokoksigeal teratomun sınıflaması tümörün lokalizasyonuna göre yapılır. Amerikan pediatri akademisinin cerrahi altbölümünün en son yaptığı surveyde sakrokoksigeal teratomların 4 tipe ayrılması uygun görülmüştür (13). Bu sınıflandırma, aynı zamanda Altman sınıflandırması olarak da bilinir.

Tip I: Tümöral kitle koksiksin ucundan dışarıya doğru protrüde olur. Genelde oldukça büyük, ilk bakışta göze çarpan üzeri normal deriyle örtülü bir kitledir. Bazen gerginlikten dolayı ciltte nekroz veya tümör rüptürü mümkündür. En sık rastlanan tiptir (%47).

Tip II: Tümör hem koksiksin ucundan doğru dışarıya uzanır, hem de koksiksin altından pelvise doğru uzanan küçük bir bölümü vardır. İkinci sıklıkta rastlanan tiptir (%35).

Tip III: Dışardan görünen bir kitle olmasına karşın ana kitle pelvis ve karın içindedir, karın içi organlara ve özellikle mesaneye baskı yapar, hidroüteronefroza neden olabilir (%9).

Tip IV: Dışardan görülen tümöral kitle yoktur. Tümör presakral yerleşimli olup intraabdominal uzantılıdır. Bu tipin tanısı genelde zordur ve kabızlık, idrar yapmada zorluk gibi şikâyetlerle başvuru mevcuttur. Rektal tuşede kitle palpe edilebilir (%10).

2.5.4.3. Histopatolojisi:

Sakrokoksigeal teratomlar solid ve kistik dokular içerir. Tümörde kistik yapı ne kadar fazlaysa benign olma ihtimali o kadar yüksektir. Tümörün büyüklüğü ile malignite arasında bir orantı yoktur. Gizlenmiş tiplerde (III ve IV) malignite oranının arttığı bildirilmektedir (%20). Yenidoğan ve küçük infantlarda (<2 ay) düşük oranda malignite (%7-10), daha büyük infant ve çocuklarda ise yüksek oranda malignite (%48-67) olduğu saptanmıştır (39).

Malign teratomlar en sıklıkla akciğer ve kemiğe olmak üzere pelvik organlar, iliak ve paraaortik lenf nodları ve karaciğere metastaz yaparlar. Tanı konulduğunda malign teratomların %5'inde metastaz mevcuttur (40).

2.5.4.4. Tanı:

Sakrokoksigeal teratomun tanısı antenatal ultrason ile konulabildiği gibi Tip I, Tip II ve Tip III olgularda doğumdan sonra sadece inspeksiyonla da tanı konulması mümkündür. Direkt grafilerde tümöral kitle içinde kemik ve diş şeklinde organize olmuş kemik yapılar görülebilir (41). Büyük ve intraabdominal uzanımlı teratomlarda Fetal MRG yapılması ayırıcı tanıda ve doğru tanının erken konulmasında dolayısıyla postnatal erken girişimin planlanmasında yol göstericidir (42).

Ameliyat edilmeden önce mutlaka AFP, β -HCG VE CEA seviyeleri tayin edilmelidir. Bu tetkikler hastalığın prognozu ve takibi açısından önem taşır. AFP seviyeleri yenidoğanda normal olarak yüksek saptanabilir. Yarılanma ömrü 5-7 gün olduğu için 3-4 ay içinde azalır, 6-12 ayda yetişkin seviyesine kadar gerilemektedir. AFP; benign lezyondan malign dejenerasyon tanısında, rezidü doku varlığında ya da rekürrens saptamada takipte kullanılmaktadır (43). β -HCG ve CEA ise yolk sak komponenti olduğu durumlarda yükselebilmektedir (44).

2.5.4.5. Ayırıcı Tanı:

Sakrokoksigeal teratomun ayırıcı tanısında, özellikle abdominal komponenti olan veya abdominal yerleşimli teratomlarda anterior meningesel, miyelomeningesel, pilonidal kistler, lipomeningesel, rektal duplikasyon kistleri, pelvik nöroblastom akla gelmelidir (45). Ayrıca çok nadir de olsa pür kistik teratomların olabileceği akılda tutulmalı ve sakrokoksigeal bölge ilişkili intraabdominal pür kistlerde teratom olasılığı düşünülmelidir (46).

2.5.4.6. Eşlik Eden Anomaliler:

Çoğu lezyon izoledir ancak %18'inde eşlik eden anomali mevcuttur. En sık görülen anomaliler; %26 santral sinir sistemi anomalileri, %24 kas iskelet sistemi anomalileridir. Ürogenital anomaliler (hipospadias, VUR), vajina ve/veya uterus duplikasyonları da eşlik edebilir (47). İntraabdominal uzanımlı teratomlarda ayrıca kitle basısı nedeniyle hidroüreteronefroz görülebilir.

Currarino Sendromu; anorektal malformasyon (anal stenoz, agenezi), sakrokoksigeal kemik defekti (sakral 3, 4, 5 agenezisi veya hemivertebrası) ve presakral kitle (genellikle presakral teratom ya da anterior meningesel, duplikasyon kisti-dermoid kist) ile semptomatik olan bir triaddır (48). Ailesel geçişlidir. Tip IV sakrokoksigeal teratomlarda Curarino Triadı açısından dikkatli olunmalıdır. Aynı şekilde anorektal

malformasyonlarda da presakral kitle açısından dikkatli olunmalıdır. Özellikle anal darlık durumunda presakral alan görüntülemesi yaptırılmalıdır.

2.5.4.7. Tedavi:

Prenatal tanı alan teratomlarda prenatal müdahale yapılabilmektedir. Hidrops fetalis ve prematürite durumunda amniyodrenaj, kist aspirasyonu, mesane çıkış obstrüksiyonunu rahatlatmak için işlem uygulanabilmektedir (33). İlk başarılı fetal rezeksiyon Adzick ve meslektaşları tarafından, plasentomegali ve polihidramnion gelişen 25 haftalık bir fetüste uygulanmış ve 400 gr immatür teratom rezeke edilmiştir, 29 haftalık iken doğum sonrası hasta explore edilmiş ve rezidüel tümör saptanmamıştır (49). Prenatal girişimler konusunda giderek artan sayıda bildiriler mevcuttur.

Sakrokoksigeal teratomun tedavisi cerrahi olarak kitlenin tam olarak, koksiks ile birlikte çıkarılmasıdır. Sakrokoksigeal teratomların tedavisinde erken ve tam eksizyon yapılmasının dayanak noktası; yaş ilerledikçe ve rezidü doku kalması halinde malign dejenerasyon riskinin artması ve kitlenin çıkarılmaması durumunda yüksek vaskülarite sebebiyle spontan ülserasyon ve hemorajiye eğilimli olmasıdır (50).

Doğumdan hemen sonra, tanı anında geniş spektrumlu antibiyotik başlanmalı, nazogastrik dekompresyon ve kalıcı mesane kateterizasyonu yapılmalıdır. Operasyon için genel anestezi uygulanması zorunludur. Yüksek output sebebiyle kardiyak yetmezlik mevcut hastalarda, inhalasyon ajanlarının kardiyodepresif etkisi sebebiyle kullanımı kısıtlıdır. Operasyon öncesi kan rezervi sağlanmalıdır, operasyon sırasında kan basıncı monitorizasyonu için arteriyel ve santral venöz kateterizasyon yararlıdır.

2.5.4.8. Cerrahi Teknik:

- Hasta; nazogastrik sonda ile mesaneye foley sonda takılması ve anestezi sonrası ameliyat için *Prone Jack-Knife* (yüzükoyun) pozisyonunda yatırılmalıdır. Pelvis büyük bir rulo ile yükseltilir ve göğüs duvarı her iki yandan küçük rulo ile desteklenir; bu destekler aynı zamanda ventilasyonu kolaylaştırmaktadır.
- Rektum disseksiyon sırasında dijital manipulasyon için hazır olmalıdır. Alternatif olarak anüsün ameliyat sahası dışında olması istenirse rektum vazelinli gaz ile kapatılmalıdır. Bu işlem ameliyat sırasında rektumun fark edilmesini de sağlar.
- Geleneksel *Chevron* insizyon ‘köpek kulakları’ çıkıntısı bırakacak şekilde karşıya ve infragluteal pililerden aşağıya posterior uyluğa doğru uzatılarak

modifiye edilmiştir. Tümör Tip IV ise veya Tip III'te presakral bölümü çok küçük dışarıdan çok az belirgin ise *Posterosagittal* insizyon da kullanılabilir. Posterosagittal insizyonda kozmetik sonuç daha iyidir (20).

- Tümör gluteus maximusun inferior ve medial yüzlerinden disseke edilir. Sakrum ve koksiks bulunur, koksiks koter ile sakrokoksigeal birleşimden transekte edilir ve koksiks tümör ile birlikte çıkarılır (50). Median and lateral sakral damarlar kitlenin devamlılığında koagüle edilir ya da tercihen ligate edilir. Koksiks çıkarılmasında başarısızlık durumunda %30-40 rekürrens insidansı mevcuttur (51).
- Rezeksiyon sırasında pelvik taban kasları korunmalı, tümör rektal duvar ve anorektal sfinkter kompleksinden tamamen serbestlenmelidir. Rektuma parmak ya da Hegar buji yerleştirilerek rezeksiyon kolaylaştırılabilir. Tümörün rektumu çepeçevre sardığı nadir vakalarda total eksizyon oldukça zordur. Eğer rektum açılırsa bu durumda kolostomi açmak da gerekebilir.
- Pelvik taban rekonstrüksiyonu, levator kasların superior ve posterior parçalarının rektumun arkasından presakral fasyaya sütürizasyonu ile yapılır (52). Normal konfigürasyona yakın anatominin oluşturulması fekal kontinansı desteklemektedir. Gluteus maksimus kasları separe sütürler ile orta hatta birleştirilir. Bu kapama öncesi perirektal alana dren yerleştirilebilir. Cilt fleplerinin medial mobilizasyonu yapılır ve fazla olan bu dokular infragluteal yarıkların altında skar oluşumunu engellemek için rezeke edilir.

İntraabdominal teratom varlığında cerrahi tedavi için Tip III ve Tip IV tümörlerde pelvik eksizyon laparotomiden önce yapılmalıdır. Operasyona supin pozisyonunda kalçalardan yükseltilerek posterosagittal insizyonla başlanır (20). Tümörün intra-abdominal bileşeninin boyutuna bağlı olarak, alt orta hat - paramedian hokey sopası insizyonla ya da Pfannenstiel - transvers alt abdominal insizyonla batına girilir. Tümör alt abdominal ve pelvik iç organlardan serbestlenir ve presakral damarlar kontrol edilebilir. Tümör abdominal yoldan total olarak çıkarılır; çıkarılamayan kısımlar gerekirse tekrar *prone* pozisyonunda devam edilerek tümörün total eksizyonu koksiks eksizyonu ile birlikte tamamlanır.

Presakral alanda geniş bir boşluk kalacağı için loja konulan penroz dren Chevron insizyonun bir köşesinden cilt dışına alınır.

2.5.4.9. Postoperatif Bakım:

Hastalar insizyonun idrar ve gaita ile kirlenmesini önlemek için *prone* pozisyonunda yatırılmalıdır. Üriner kateter 24 saat sonra, dren 48-72 saat sonra çekilebilir. Nazogastrik geleni minimal olması durumunda postoperatif 1. gün hasta beslenebilir.

Erken postoperatif dönemde nöropraksi gelişebilir ve zayıf kontraksiyon, nörojenik mesaneye sebep olabilir. Bu durum genellikle geçicidir ve hastalar bu dönemde aralıklı kateterizasyon ihtiyacı duyar. Bu durumda foley kateter genellikle 72. saatten sonra mesane antrenmanı yaptırılarak alınır.

2.5.4.10. Kemoterapi:

Malign lezyonlar sadece cerrahiye düşük yanıt vermektedir; %10 sağ kalım bildirilmektedir. Adjuvan kemoterapi ise sağkalımı iyileştirmektedir ve tümörü küçülterek sekonder rezeksiyona uygun hale getirmektedir.

2.5.4.11. Postoperatif Takip:

Postoperatif takip süresi ve aralıkları konusunda değişik görüşler bildirilmekle birlikte; sıklıkla tavsiye edilen ilk üç ay aylık, ilk bir yıl üç ayda bir, 3 yıl boyunca 6 aylık aralıklarla, daha sonraki yıllar adolesan döneme kadar yıllık muayene şeklinde yapılmasıdır. Her muayenede rektal tuşe ile perasakral alan değerlendirilmelidir ve AFP kan düzeyi bakılmalıdır (52). Çoğu rekürrens ilk 3 yıl içinde gelişmektedir. Malign rekürrens saptanabilmesi için AFP seviyeleri her periodik kontrolde bakılmalıdır; AFP yükselmesi rekürrense işaret edebilir; bu durumda pelvik BT ya da MRG değerlendirmesi yapılmalıdır. Serum CA 125 ölçümleri de, sakrokosigeal teratom nüks takibinde AFP ile birlikte değerlendirildiğinde anlamlı olabilmektedir ve malign olmayan nüksleri gösterebilmektedir (53). Rekürrens durumunda preoperatif kemoterapinin ardından rezidü veya nüks kitle rezeksiyonu yapılmalıdır.

2.5.4.12. Prognoz:

Rekürrens genellikle inkomplet rezeksiyon ve koksigektomi yapılmaması durumunda ortaya çıkmaktadır (54).

Antenatal/obstetrik faktörler; hidrops fetalis, plasentomegali varsa %100'e yakın mortal seyretmektedir. Doğum sırasında distozi ve tümör rüptürü, hemoraji en önemli komplikasyonlardır. Büyük kitlelerde tümöre giden kan akımı çok yüksek olacağı için

fetal veya neonatal dönemde kardiyak yetersizlik bulguları başlamışsa prognoz kötüdür (55).

Tanı yaşı; benign lezyonların yaş ile malign transformasyon riski artmaktadır. Tümör histoloji ve evresi; benign tümörlerin %95'ine kadar sadece cerrahi ile kür sağlanabilmektedir. Malign tümörlerin prognozu tümör tipi, evre ve lokasyona bağlıdır.

Cerrahi ve adjuvan kemoterapi kombinasyonu ile %90'a kadar kür sağlanabilmektedir. Ancak 5 yıl içinde %11 rekürrens riski mevcuttur (56). İlişkili anomalilerin varlığı prognozu kötü etkilemektedir (57).



3. GEREÇ VE YÖNTEM

Bu çalışma, Ocak 2004 ile Temmuz 2019 yılları arasında Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Sağlık Uygulama ve Araştırma Merkezi, Çocuk Cerrahisi Kliniği'nde teratom tanısı ile opere edilen olgularda geriye dönük olarak yapıldı. 24.03.2017 tarihli ve 65 sayılı hastanemiz klinik araştırmalar etik kurul onayı ile retrospektif olarak arşiv dosyaları ve hastane bilişim sistemindeki verilerden hastalara ait tüm bilgilere ulaşıldı.

Olguların yaş, cinsiyet, teratom yerleşim yeri, yerleşim tarafı, teratom tipi, başvuru şikâyeti, şikâyetin süresi, hikâyesi, prenatal tanı ve takip olup olmadığı, muayene bulguları, preoperatif laboratuvar tetkik sonuçları; (AFP, β -HCG, İnhibin A, CEA, CA 15,3, CA 125, CA 19,9, CRP, LDH, Ferritin, sT3, sT4, TSH), preoperatif görüntüleme bulguları, preoperatif röntgende kalsifikasyon varlığı, operasyon tarihi, operasyon yaşı, operasyon tekniği, insizyon tipi, peroperatif bulgular, varsa peroperatif ek patolojiler, histopatolojik sonuç ve alınmış ise sitoloji sonucu, eşlik eden hastalıklar, taburculuk süresi, operasyondan sonra kontrol AFP, β -HCG değerleri ve yüksek çıkan diğer laboratuvar tetkiklerinin normal değere ulaşma süresi kaydedildi.

Sakrokoksigeal teratomlu yenidoğanlarda ise ek olarak; doğum tarihi, doğum haftası, doğum kilosu (bebek+kitle ağırlığı), doğum şekli, prenatal tanı varlığı, var ise tipi ve kitlenin özelliği, ameliyat yöntemi, insizyon şekli, drenaj yapılıp yapılmadığı, kitle eksizyonu sonrası olguların tartısı (ve kitlenin ağırlığı), çıkarılan kitlenin hacmi ($V = (4/3) \times \pi \times (L/2) \times (L/2) \times (D/2)$ formülü ile hesaplanan), kan ürünü replasmanı ihtiyacı olmuş ise transfüze edilen ürün ve miktarı, operasyon sonrası ilk gaita çıkışı süresi, operasyon sonrası ilk beslenme süresi, postoperatif komplikasyon varlığı, taburculuk süresi değerlendirildi. Kontrol takiplerde hastanın miksiyon ve defekasyon özellikleri kayıtları. Tüm bilgiler Excel dosyasına kayıt edildi.

Teratomların cinsiyete göre dağılımları, vücut bölgelerine göre dağılımları, tedavi sonuçları yüzdeler olarak değerlendirildi.

İstatistiksel analizler için NCSS (Number Cruncher Statistical System) 2007 (Kaysville, Utah, USA) programı kullanıldı. Çalışma verileri değerlendirilirken tanımlayıcı istatistiksel metotların (Ortalama, Standart Sapma, Medyan, Frekans, Oran, Minimum, Maksimum) yanı sıra verilerin dağılımı Shapiro-Wilk Testi ile değerlendirilmiştir. Niceliksel verilerin normal dağılım göstermeyen bağımsız iki

grubun karşılaştırmasında Mann-Whitney U Testi, nitel olan verilerin karşılaştırılmasında Fisher-Exact Testi kullanıldı. Anlamlılık $p<0.01$ ve $p<0.05$ düzeylerinde değerlendirildi.



4. BULGULAR

Ocak 2004 - Temmuz 2019 tarihleri arasında 15.5 yıllık sürede teratom tanısı ile takip ve tedavi edilen toplam 68 hastadan 51'i (%75) kız, 17'si (%25) erkekti. Kız erkek oranı 3:1 bulundu. Hastaların ortalama yaşı 8,2 yıl (1 gün-17 yıl) olup, 68 olgudan 33'ü (%48,5) olgu yaşamın ilk 1 ayı içinde başvurmuşlardı; 33 yenidoğan olgudan 25 olguda (%75,7) prenatal tanı konulmuştu. Over teratomları ile birlikte testiküler, abdominal, torakal, retroperitoneal ve sakrokoksigeal teratom tanısı alan 35 olgu (%51,4) geç tanı almıştı; bunlarda ortalama tanı yaşı 8 yıl (1,5 ay-17 yıl) idi. Teratom olgularımızın demografik özellikleri Tablo 1'de özetlenmiştir (Tablo 1).

Teratomlar yerleştikleri bölgeye göre 1 olgu (%1,4) orofaringeal, 2 olgu (%2,9) servikal, 1 olgu (%1,4) torakoabdominal, 24 olgu (%35,2) gonadal (21 olgu over, 3 olgu testis), 2 olgu (%2,9) retroperitoneal, 38 olgu (%55,8) sakrokoksigeal yerleşimliydi. Sakrokoksigeal teratom olgularından 1'i retroperitonealden batına uzanarak (Tip IV), ileri derecede batın distansiyonu yapmıştı. 51 kız olgunun 1'i (%1,9) orofarengeal, 1'i (%1,9) servikal, 1'i (%1,9) torakal (torakoabdominal), 27'si (%52,9) sakrokoksigeal, 21'i (%41,1) over yerleşimliydi. 17 erkek olgunun 1'i (%5,8) servikal, 2'si (%11,7) retroperitoneal, 1'i retroperitoneal uzanımlı olmak üzere 11'i (%64,7) sakrokoksigeal, 3'ü (%17,6) testis yerleşimliydi. Kız ve erkeklerde teratomların yerleşim yerlerine göre dağılımları Tablo 2'de özetlenmiştir (Tablo 2), aynı şekilde Grafik 1'de dağılımları gösterilmiştir (Grafik 1).

Olguların başvuru şikâyetleri değerlendirildiğinde; baş-boyun bölgesi teratomlarından 2 (%100) servikal yerleşimli olgu ve 1 (%100) orofarengeal teratom prenatal tanı idi. 1 (%100) torakoabdominal yerleşimli olgu sık alt solunum yolu enfeksiyonu şikâyeti ile başvurmuştu. Over teratomlarında en sık karın ağrısı şikâyeti saptandı (14 olgu, %66,6); 4 (%19) olguda kusma, 3 (%14,2) olguda adet düzensizliği, 2 (%9,5) olguda karında şişlik, 1 (%4,7) olguda her iki memede şişlik, 1 (%4,7) olguda meme ağrısı ve kıllanma 1 (%4,7) olguda kilo alma saptandı. 3 skrotal teratomun 2'sinde (%66,6) skrotal şişlik mevcuttu, 1 (%33) hastada ise kitle rutin kontrol sırasında yapılan ultrasonda insidental saptandı. Retroperitoneal teratomlu 1 olgu (%50) prenatal tanı idi, 1 olguda (%50) karında kitle şikâyeti mevcuttu. Retroperitonealden batına uzanan 1 sakrokoksigeal teratom olgusu prenatal tanı abdominal kistik kitle idi. 38 sakrokoksigeal teratomlu olgudan 21 olguda (%55,2) prenatal tanı mevcuttu, 15

(%39,4) hasta gluteal bölgede kitle-şişlik ile başvurdu. Geç tanı alan olgulardan 2'si (%5,2) idrar-gaita yaparken zorlanma, 1'i (%2,6) ise rektal kanama ve bacak ağrısı şikâyeti ile başvurmuştu. Olguların başvuru şikâyetleri Tablo 3'te özetlenmiştir (Tablo 3).

Taraf gösteren tüm teratomlar değerlendirildiğinde 14 olgu (%20,5) sağ, 12 olgu (%17,6) sol, 2 olgu (%2,9) ise bilateral yerleşimliydi. Baş-boyun teratomlarının tümü orta hat yerleşimliydi. Torakoabdominal teratom ise sağ hemitoraksı doldurup diyafragmayı penetre ederek subdiyafragmatik alana da uzanım göstermekteydi. Over teratomlarının 11'i (%52,3) sağ, 8'i (%38) sol, 2'si (%9,5) bilateral yerleşimliydi; 3 (%100) testis teratomu sol taraf yerleşimliydi. Retroperitoneal teratomlu 2 olgu (%100) da orta hattın sağında yer almaktaydı. Sakrokoksigeal teratomlardan retroperitoneal yerleşimli olan 1 olgu (%2,6) soldan tüm batını doldurmaktaydı; diğer 37 (%97,3) sakrokoksigeal teratom ise orta hat yerleşimliydi. Teratomların yerleşim taraflarına göre dağılımları Tablo 4'te özetlenmiştir (Tablo 4).

Hastaların ameliyat öncesi ortalama AFP değerleri 26.041 ng/dl (1-183.924 ng/dl) iken; ameliyat sonrası ortalama 5,9 ayda (2 hafta-5 yıl) ortalama 6.605 ng/dl (0,8-66.916 ng/dl) olmuştu. 68 hastada 70 teratom değerlendirilmesi sebebiyle, histopatolojik tanı 56 (%80) materyalde matür olup, 12 (%17,1) materyalde immatür teratom idi, 2 (%2,8) materyalde ise endodermal sinüs tümörü saptandı. Orofarengeal teratom olan hastanın postnatal erken dönem kaybedilmesi sebebiyle hasta opere edilemedi, ancak tümör görüntüsü *fetus in fetu* olması sebebiyle histopatolojisi matür teratom olarak değerlendirildi. 61 hasta (%89,7) taburcu edildi; 7 hasta (%10,2) kaybedildi. Yaşayan hastaların ortalama hastanede kalış süreleri 6,2 gün (1 gün-26 gün) idi (Tablo 1).

Baş boyun teratomu mevcut 3 hastanın tümünde prenatal tanı konulmuştu. Orofarengeal teratom olgusu postnatal erken saatlerde kaybedilmesi sebebiyle opere edilemedi. Servikal teratomların 1'i kız, 1'i erkek, olup iki olgu da sol üst servikal yerleşimliydi; erkek olguda submandibuler alandan aşağıya doğru, orta hattı önden sağa doğru hafif geçen dev kitle mevcuttu. Kız olguda kitle yaklaşık 10x12 cm çapında olup orta hattı geçmiyordu. Her iki olgu da prenatal tanı konularak hastanemize doğum için yönlendirilmiş olgulardı. Bu olguların AFP değerleri 183.924 ng/dl ve 134.495 ng/dl olup, histopatolojik değerlendirmeleri matür teratom olarak raporlandırıldı. Kız hasta doğumu takiben aynı gün kaybedildi ve patolojisi postmortem biyopsi şeklinde gönderildi. Erkek hasta ise 6 yıldır takipte olup AFP değerleri halen normal

sınırlardadır. Yıllık takiplerine devam edilmektedir. Baş boyun teratomlu olguların özellikleri Tablo 5'te özetlenmiştir (Tablo 5).

Gonadal teratomlu 24 olgunun 21'i (%87,5) kız olup 3'ü (%12,5) erkekti. Kızlarda over teratomlarının 11'i (%52,3) sağ, 8'i (%38) sol, 2'si (%9,5) bilateral yerleşimliydi, toplamda 23 over kisti değerlendirildi. 3 testis teratomu ise sol taraf yerleşimliydi. Olguların başvuru ortalaması yakınma süresi 29 gün (1 gün-5 ay), ortalama operasyon yaşı 10,9 yıl (1-17yıl) idi. Kız olguların başvuru ortalaması yakınma süresi 23 gün (1gün-5 ay), ortalama operasyon yaşı 12,3 yıl (7-17 yıl) idi. 2 erkek olgunun başvuru ortalaması yakınma süresi 3,5 ay (1-6 ay) idi, 1 hastada ise kitle insidental saptanmıştı, ortalama operasyon yaşı 1,3 yıl (1-2 yıl) idi. Over teratomlu hastalarda 2 hastaya eşlik eden obezite ve polikistik over sendromu (PKOS), testis teratomlu 1 hastada ise ipsilateral kordon kisti, diğer hastada kontralateral inguinal herni sebebiyle daha önceden operasyon öyküsü mevcuttu.

Gonadal teratomlu olgularda ortalama AFP değerleri 2,4 ng/dl olup, tüm hastaların AFP değerleri normal sınırlar aralığındaydı. Over teratomlu 1 hastada CA 125 değeri 103 U/ml olarak, 4 hastada ise CA 19-9 değeri ortalama 506,2 U/ml olarak yüksek bulundu, β -HCG ve inhibin A değerleri tüm hastalarda normal sınırlardaydı.

Radyolojik görüntülemelerde sadece bir hastanın düz karın grafisinde kalsifikasyon saptandı. Ultrason görüntülemesi ve Doppler US tüm hastalarda yapılmıştı. Kızlarda ultrason ile ortalama 84,5 x 64,3 mm boyutlarında (41-300 x 27-200 mm) overde lezyon, erkeklerde ultrason ile ortalama 24,9 x 19,2 mm boyutlarında (14,7-40 x 8-40 mm) sol testiste lezyon saptanmıştı.

Over teratomlu 12 (%57,1) hastaya kitle eksizyonu ile over koruyucu cerrahi; 5 torsiyondan 1'inde olmak üzere 9 (%42,8) hastaya da ooferektomi yapıldı; 2 (%9,5) hastanın karşı overinden biyopsi alındı. 11 (%52,3) hasta laparoskopik, 10 (%47,6) hasta laparotomi ile (Pfannenstiel - göbek altı transvers - median insizyon) opere edildi. 3 testis teratomu da inguinal yaklaşım ile opere edildi; 2 (%66,6) hastaya orşiektomi, 1 (%33,3) hastaya testis koruyucu cerrahi yapıldı. Orşiektomi yapılan hastaların 1'inden lenf nodu örneklemesi de yapıldı. Tüm patolojiler matür kistik teratomla uyumlu idi, patolojik sitoloji bulgusu saptanmadı. Ortalama hastanede kalış süresi 1,9 gün (1-5 gün) idi. Gonadal teratom olgularının özellikleri Tablo 6'da özetlenmiştir (Tablo 6).

Sakrokoksigeal teratomlu 38 olgunun 27'si (%71) kız, 11'i (%28,9) erkek olup 1 erkek olguda Tip IV teratom retroperitonealden abdomene uzanmaktaydı. 21 (%55,2) olguda prenatal tanı mevcut olup yenidoğan döneminde opere edilmiş olan 29 (%76,3)

olgunun ortalama operasyon yaşı 4,5 gün (1-30 gün) idi. Geç tanı alan ve bir yaşından önce opere edilen 5 (%13,1) olgunun başvuru şikâyeti; 3 olguda gluteal kitle, 1 olguda anüsün önde olması, 1 olguda ise huzursuzluk ve karında kitle idi. Bir yaşından sonra opere edilen 5 (%13,1) olgudan ise 3'ü gluteal bölgede kitle, 1'i idrar ve gaita yaparken zorlanma, 1'i bacak ağrısı ve rektal kanama sebebiyle başvurmuşlardı. Sakrokoksigeal teratomlu olguların genel özellikleri Tablo 7'de özetlenmiştir (Tablo 7).

Preoperatif dönemde AFP değeri, tetkikleri alınan 22 (%57,8) hastadan 19'unda (%86,3) yüksek, 3 (%13,6) hastada ise normal sınırlar aralığındaydı; bu üç hasta 4 yaş, 4,5 yaş ve 5 yaşındaki geç dönem tanı alan olgulardı. Ortalama AFP değerleri 43.756 ng/dl olup postoperatif AFP değerlerinin normale dönüş süresi ortalama 8,5 ay (3-15 ay) idi. 8 (%36,3) hastanın preoperatif β -HCG değeri yüksek bulundu; ikisinde β -HCG'nin kitle eksizyonu sonrası normal değerlere gerilediği görüldü. Bu 8 hastanın 5'inin patolojik incelemesi matür teratom, 3'ü ise; 1'i Grade 1, 1'i Grade 3, diğerinin evresi saptanmamış olmak üzere immatür teratom uyumlu olarak raporlandı (Tablo 7).

Sakrokoksigeal teratom tanılı 38 olgunun Altman sınıflamasına göre dağılımları 27 olgu (%71) Tip I, 4 olgu (%10,5) Tip II-III, 7 olgu (%18,4) Tip IV teratom olup; Tip IV olan 7 olgunun ortalama başvuru yaşı 13,1 ay (1 gün-4,5 yaş) idi.

Sakrokoksigeal teratomlardan 30 (%78,9) olguda *chevron* insizyon, 6 (%15,7) olguda posterosagittal insizyon ile (bunlardan dördünde ayrıca abdominal yolla), 2 (%5,2) olguda ise laparotomi ile teratom kitlesi total olarak eksize edildi. 1 retroperitoneal uzanımlı kitle abdominal yoldan eksize edildi, hasta postoperatif ilk saatlerde kaybedildi ve koksigektomi yapılamadı. İleri derecede batın distansiyonu olan ve kitlesi diafragma kadar uzanıp tüm batını dolduran bir hastaya sadece göbek üstü ve altı vertikal insizyon ile yapılan kitle eksizyonunun ardından, hastanın batını kapatılmadan resüsitasyon ihtiyacı olması sebebiyle kitlenin teratom olduğu düşünülmeye rağmen koksiks eksizyonu yapılamadı ve acil olarak işlem sonlandırıldı. Hasta operasyondan sonra erken dönemde kaybedildi. Rektal ekstrofi hastada ise sakral agenezi mevcuttu. Bu üç hasta hariç 35 hastada (%92,1) ilk ya da ikinci operasyonda kitle eksizyonu ile birlikte koksigektomi yapılmıştı. Geç dönem koksiks eksizyonu yapılan hastalardan ise birinde hastanın batın içi kitlesi rektal duplikasyon kisti düşünülerek laparotomi ile eksize edildi, kitlenin teratom ile uyumlu gelmesi üzerine post operatif 15. gününde yapılan operasyon ile koksiks eksize edildi. Başka bir hastada ilk operasyonundan 1 yıl sonra koksiks eksizyonu yapıldı.

İki hastaya iki adet olmak üzere 30 (%78,9) hastaya operasyon sırasında cilt altı/presakral bölgeye dren konulmuş olup ortalama dren kalış süresi 4,6 (2-8 gün) gündü.

Postoperatif tartıları alınan hastaların operasyon öncesi ile tartıları kıyaslandığında eksize edilen kitleye bağlı olarak ortalama 1077 gram (10 gram-7556 gram) kayıp olduğu tespit edildi. Çıkarılan kitle hacmi ortalama 662 ml (6-4.445 ml) olarak hesaplandı. Sakrokoksigeal teratomlu olgularda teratom tipleri ve operasyon bilgileri Tablo 8’de özetlenmiştir (Tablo 8).

12 (%31,5) hastada sakrokoksigeal teratoma ek bir patoloji mevcuttu. 1 (%2,6) hastada OEİS sendromu, 1 (%2,6) hastada rektal ekstrofi ve split notokord sendromu, 1 (%2,6) hastada ürogenital sinüs eşlik etmekteydi. En sık görülen ek anomali 3’er (%7,8) hasta ile renal ektazi ve hipotiroidi idi. Sakrokoksigeal teratomlu olgularda eşlik eden patolojiler Tablo 9’da özetlenmiştir (Tablo 9).

Hastalara ortalama postoperatif 2. gün (0-16 gün) enteral beslenme başlandı. Aynı zamanda OEİS sendromu mevcut olan hastanın postoperatif dönemde böbrek yetmezliği gelişmesi, genel durumunun kötü seyretmesi ve insizyon detaşmanı, mesane prolapsusu gelişmesi sebebiyle 2. kez opere olması ve kolostomi açılması üzerine hastanın oral beslenmesine postoperatif 16.gün başlandı (Tablo 7).

Hastaların postoperatif dönemde ortalama gaita çıkış süreleri 1,6 gündü (0-4 gün). Bir hastaya rektuma sıkı yapışık kitlenin kolonu perfore etmesi üzerine, bir hastaya eşlik eden rektal ekstrofi sebebiyle, bir hastaya da kitlenin rektuma çok yapışık olması sebebiyle koruyucu olmak üzere eş zamanlı kolostomi ve kitle eksizyonu yapılması gerekti. Üç hastanın da kolostomiden gaita çıkışı postoperatif 3. gün başladı; 2’sinde kolostomi 6 ay sonra kapatıldı. Üçüncü hastanın ise ekstrofi sebebiyle açılmış olan kolostomisi, PSARP’ı 5,5 yaşında yapılmış olmasına rağmen stimülatör ile kontrolde kas kasılmasının yeterli olmaması sebebiyle halen kapatılamadı (Tablo 7).

16 hastada preoperatif, peroperatif ve postoperatif dönemde olmak üzere kan ve kan ürünü replasmanı yapıldı. OEİS sendromlu hastada böbrek yetmezliği gelişmesi ve 2. operasyonu sebebiyle taburculuk süresi 42 güne uzadı. Bu hasta dışlandığında ortalama hastane yatış süresi 8,8 gün (1-26 gün) idi (Tablo 7).

15 (%39,4) hastada postoperatif dönemde komplikasyon gelişti; en sık görülen komplikasyon 7 hastada (%18,4) insizyon detaşmanı, ikinci sıklıkta ise 4 hastada (%10,5) insizyon bölgesinde enfeksiyondu. Postoperatif dönemde poliklinik kontrolüne başvuran 13 hastadan 4 hastada (%30,7) takip süresi boyunca medikal tedaviye yanıt

veren kabızlık şikâyeti mevcuttu. Sakrokoksigeal teratom olgularında postoperatif komplikasyonlar ve takip özellikleri Tablo 10'da özetlenmiştir (Tablo 10).

Eksize edilen kitlelerin histopatolojik incelemesinde immatür teratom tanılı 12 (%17,6) olgudan 5 (%7,3) olguda Grade 1, 1olguda (%1,4) Grade 2, 2 olguda (%2,9) Grade 3 immatür teratom saptandı, 4 hastanın evrelemesi patoloji sonuçlarından öğrenilemedi. Bu 12 immatür teratom ve 2 endodermal sinüs tümörü tanılı 14 olgu çocuk onkoloji takibine yönlendirildi. İmmatür teratomlu olguların AFP değerleri ameliyat öncesi ortalama 76.431 ng/dl (5,4-160.548) idi, bu olgularda nüks gözlenmedi. 1 endodermal sinüs tümörü tanılı hastada koksiks eksizyonu yapılmaması sebebiyle tümör yaklaşık 1 yıl sonra nüks etti, 2. operasyonda koksiks de çıkarıldı. Teratom olgularının histopatolojik sonuçları Tablo 11'de özetlenmiştir (Tablo 11).

38 sakrokoksigeal teratom olgusunun 4'ü cerrahi işlem sonrası aynı gün 1'i ise postoperatif 3. gün olmak üzere 5 hasta (%13,1) kaybedildi. Kaybedilen 5 hastanın tümü yenidoğan döneminde tanı almış hastalardı, 1 hasta hariç tümü erkekti. 5 hastanın 4'ü prematüreydi ve ortalama doğum haftası 33,1 (28-39) haftaydı. 3 hastanın (%60) patoloji sonucu Tip I, 2 hastanın (%40) ise Tip IV teratom ile uyumlu idi. Eritrosit süspansiyonu, trombosit süspansiyonu, TDP ve kriopresipitat olmak üzere kaybedilen 5 hastanın 4'ünün (%80) kan ürünü replasmanı ihtiyacı oldu. Exitus olan sakrokoksigeal teratom olgularının özellikleri Tablo 12'de özetlenmiştir (Tablo 12).

Tüm hastaların patoloji sonuçlarının cinsiyete göre dağılımı değerlendirildiğinde erkek hastaların 10'u (%58,8) matür, 7'si (%41,1) immatür, kız hastaların ise 44'ü (%86,2) matür, 5'i (%9,8) immatür teratom, 2'si (%3,9) ise malign tanılı idi. Patoloji sonuçları yaşa göre sınıflandırıldığında; yenidoğan 22 olgunun (%66,6) matür, 11 olgunun (%33,3) immatür, süt çocuğu grubunun 4'ü (%80) matür, 1'i (%20) immatür teratom, çocukluk çağı döneminde ise 28 olgunun (%93,3) matür teratom, 2 olgunun (%6,6) ise malign olarak sonuçlandığı görüldü. Bölge dağılımlarına bakıldığında baş-boyun, torakal ve gonadal bölge teratomu olgularının tümünün patolojisinin benign olduğu, retroperitoneal yerleşimli 2 (%100) olgunun ve sakrokoksigeal teratomlu 10 olgunun (%26,3) immatür teratom, 2 (%5,2) sakrokoksigeal yerleşimli kitlesi mevcut olgunun ise malign olduğu saptandı. Teratomların patoloji sonuçlarının cinsiyet, yaş ve bölge dağılımı Tablo 13'te özetlenmiştir (Tablo 13).

Yenidoğan döneminde opere edilen 24'ü yaşayan ve 5'i kaybedilen 29 sakrokoksigeal teratomlu hastada; yaşayanların ve kaybedilen grubun ortalama doğum haftaları, ortalama doğum tartıları, preoperatif ve postoperatif tartı farkından hesaplanan

ortalama kitle ağırlıkları, ortalama kitle hacimleri (kitlelerinin histopatoloji raporu, ameliyat notu ve ultrason verileri kullanılarak elde edilen 3 boyutlu ölçümlerinin $V = (4/3) \times \pi \times (L/2) \times (L/2) \times (D/2)$ formülü ile hesaplanan) değerlendirildi. Sırası ile kaybedilen, yaşayan ve sakrokoksigeal teratomlu yenidoğanların ortalama doğum haftası 33,1, 37 ve 36,3 hafta, ortalama doğum tartıları sırasıyla 4400, 3603 ve 3740 gram, ortalama kitle boyutları sırasıyla 15,4x13,3x12,1 cm, 9,4x7,7x6,3 cm ve 10,4x8,6x7,2 cm olarak saptandı. Olguların ortalama kitle hacmi sırasıyla 1780, 430 ve 662 ml, ortalama kitle ağırlığı 2866, 706 ve 1077 gram olarak bulundu. Yaşayanların ve kaybedilenlerin ortalama doğum haftaları, ortalama doğum tartıları, preoperatif ve postoperatif tartı farkından hesaplanan ortalama kitle ağırlıkları, ortalama kitle hacimleri Tablo 14'te gösterildi (Tablo 14).

Yaşayan ve kaybedilen hastalarda doğum haftası kıyaslandığında kaybedilen 5 olgunun 4'ünün prematüre olması sebebiyle, ortalama doğum haftasının yaşayanlara göre daha düşük olduğu görüldü; aralarındaki bu farklılık istatistiksel olarak anlamlı bulundu ($p=0,036$; $p<0,05$).

Yaşayan ve kaybedilen olguların doğum tartıları (bebek+kitle ağırlığı) kıyaslandığında eksitus olan grubun ortalama doğum ağırlığı 4400 gram, yaşayan grubun ise 3603 gram olduğu, eksitus olan grubunun daha yüksek doğum ağırlığına sahip olduğu saptandı. Yaşayan grubun doğum kilosunun kaybedilen gruba göre daha düşük olması istatistiksel olarak anlamlı değildi ($p>0,05$).

Yaşayan ve kaybedilen iki grup arasında ultrasonografi ölçümleri, ameliyat bulguları ve patoloji raporlarına göre hesaplanan kitle volümü kıyaslandığında, kaybedilen grubun kitle volümü ortalama 1780 ml, yaşayan grubun ise 430 ml idi, kaybedilen grubun yaşayan gruba oranla yaklaşık 4 kat daha büyük kitle hacmine sahip olduğu saptandı, aralarındaki bu farklılık istatistiksel olarak anlamlı bulundu ($p=0,039$; $p<0,05$).

Hastaların kitle ağırlığı (ameliyat öncesi ve sonrası alınan tartı farkı ile hesaplanmış) kaybedilen ve yaşayan grupta kıyaslandığında kaybedilen grubun kitle ağırlığı, kitle hacmi ile doğru orantılı olarak daha fazlaydı ve kaybedilen grupta ortalama kitle ağırlığı 2866 gram olup yaşayan grupta 706 gram bulundu. Kaybedilen ve yaşayan olguların ortalama kitle ağırlığı arasındaki farklılık istatistiksel olarak anlamlı bulundu ($p=0,005$; $p<0,05$).

Yaşayan ve kaybedilen iki grup arasında kitle volümü/doğum ağırlığı oranı kaybedilen grupta ortalama 0,37, yaşayan grupta 0,09 idi; kitle ağırlığı/doğum ağırlığı

oranı ise kaybedilen grupta ortalama 0,59, yaşayan grupta ise 0,15 olarak bulundu. Kitle volümü/doğum ağırlığı ve kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranları yaşayan ve kaybedilen hasta gruplarında kıyaslandığında aralarındaki ilişki anlamlı bulundu (Kitle Volümü/Doğum Ağırlığı $p=0,002$; Kitle Ağırlığı/Doğum Ağırlığı $p=0,002$; $p<0,05$).

Yaşayan ve kaybedilen hasta gruplarının doğum tartısı, doğum haftası, kitle ağırlığı, kitle hacmi, kitle volümü/doğum ağırlığı ve kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranları açısından karşılaştırma sonuçları Tablo 15'te özetlenmiştir (Tablo 15).

Sakrokoksigeal teratomlu yenidoğan 29 hastada, yaşayan 24 hastanın 12'sine, kaybedilen 5 hastanın ise 4'üne ameliyat öncesi, ameliyat sırasında veya sonrasında kan ve kan ürünü transfüzyonu yapılmıştı. Transfüzyon yapılan bu 16 hastadan kaybedilen ve yaşayan grubun sırasıyla ortalama kitle hacmi 1988 ml, 659 ml; ortalama kitle ağırlığı 3178 gram, 1164 gram; ortalama kitle volümü/doğum ağırlığı 0.41, 0.34 ve ortalama kitle ağırlığı/doğum ağırlığı 0.66, 0.55 idi. Kan transfüzyonu yapılan olguların ortalama kitle hacim ve ağırlıklarının transfüzyon yapılmayan hastalardan daha yüksek olduğu saptandı ancak kitle volümü/doğum ağırlığı ve kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranları ortalamasında iki grup arasında belirgin bir farklılık bulunmadı. Yaşayan ve kaybedilen hasta gruplarından kan transfüzyonu alan olgu sayıları Tablo 14'te özetlenmiştir (Tablo 14).

Kan transfüzyonu yapılan ve yaşayan 12 hasta mevcutken 4 hasta peroperatif ve postoperatif transfüzyona rağmen kaybedilmiştir. Bu iki grup kıyaslandığında yaşam durumu ile kan transfüzyonu arasında istatistiksel olarak anlamlı bir ilişki bulunmadı ($p>0,05$). Kan transfüzyonu ile mortalite arasındaki ilişki Tablo 16'da özetlenmiştir (Tablo 16).

5. TARTIŞMA

Teratomlar çocuklarda en sık görülen germ hücreli tümörlerdir ve diferansiye olma derecelerine göre matür veya immatür olarak sınıflandırılır. İmmatür doku yoğunluğuna göre teratomların evreleme sistemi Gonzales-Crussi ve arkadaşları tarafından modifiye edilmiştir, Norris tarafından sunulan derecelendirme sistemine göre puanlanan nöroektodermal veya blastemal doku içermektedirler. Bu sisteme göre Grade 0: matür-benign, Grade 1: muhtemelen benign, Grade 2: muhtemelen malign, Grade 3: malign olarak sınıflandırılmaktadır. Teratomlar, hastalığın farklı biyolojik davranışıyla ilgili olarak çocukluk ve ergenlikte heterojen epidemiyolojik, klinik ve patolojik yapıya sahiptir (58).

Teratomların toplumda görülme insidansı 1/35.000-40.000 canlı doğum olarak bildirilmektedir (59). Kızlarda ve erkelerde görülme oranı ise 4:1 olarak kız predominansı göstermektedir (60). Terenziani ve ark. yaptığı 10 yıllık 219 hastayı kapsayan bir çalışmada kız hasta sayısı erkek hastalardan 2,5 kat fazla olarak saptanmıştı (58). Çalışmamızda teratom tanısı ile takip ve tedavi edilen 68 hastanın %75'i kız, %25'i erkekti. Olgularımızın kız/erkek oranının 3:1 olarak literatür ile uyumlu olduğu görüldü.

Teratomların tanı alma yaşı lokalizasyonlarına göre değişir. Ekstragonadal tümörler öncelikle yenidoğan ve erken çocukluk döneminde, gonadal tümörler ise adolesan dönemde sık görülmektedir.

Gonadal tümörlerden olan, testiküler tümörler bimodal dağılım gösterir; sıklıkla 2 yaş öncesi ve adolesan/genç yetişkinlik döneminde tanı alırlar (61). Over teratomu 15 yaşına kadar olan büyük çocuklarda görülür. Germ hücre tümörlerinin en sık görülen tipi olan sakrokoksigeal teratomlar ise ağırlıklı olarak yenidoğan ve bebeklerde gözlenirler (58).

Çalışmamızda hastalarımızın ortalama tanı yaşı 8,2 yıl (1 gün-17 yıl) olup %48,5'i yaşamın ilk 1 ay'ı içinde başvurmuşlardı; yenidoğanların %75,7'sinde prenatal tanı konulmuştu. Sıklıkla geç dönemde tanı almaları sebebiyle over teratomları dışlandığında kalan 47 hastadan; testiküler, abdominal, torakal, retroperitoneal ve sakrokoksigeal teratomlu olguların 14'ü (%29,7) ise geç tanı almıştı; bu olguların ortalama tanı yaşı 1,7 yıl (1,5 ay-5,1 yıl) idi. Geç tanı alan teratomlar değerlendirildiğinde testis teratomlarının sıklıkla 2 yaş öncesi, retroperitoneal

teratomların abdominal kitle ile ilk 1 yıl içinde, özellikle Tip IV sakrokoksigeal teratomların da çocukluk döneminde tanı alabilmesi sebebiyle bulgularımız literatür ile uyumluydu.

Tapper ve ark. 54 yıllık süreçte opere edilen 254 teratomun yerleşim bölgelerinin en sık sakrokoksigeal (%40), 2. sıklıkta over (%37) ve sonrasında sırasıyla baş-boyun, retroperiton, mediasten ve diğer bölgeler olarak dağıldığını bildirmişlerdir (14). Çalışmamızda teratomların bölgesel dağılımı (%55,8 sakrokoksigeal, %30,8 over) literatür ile uyumlu bulundu. Bu çalışmada yenidoğan döneminde tanı alan %49 hasta mevcut iken çalışmamızdaki hastaların %47'si yenidoğan döneminde tanı almış olup Tapper ve ark. çalışmasındaki oranlar ile benzerlik göstermekteydi.

Testis teratomları hariç tüm teratomlar sıklıkla %80 oranında kız hastalarda görülmektedir. Literatürde sakrokoksigeal teratomların kız:erkek insidansı 4:1, retroperitoneal teratomların 2:1, servikofasyal teratomlarda oranın eşit olduğu bildirilmiştir (61). Çalışmamızdaki baş boyun teratomlarının %66,6'sı, torakoabdominal teratomların %100'ü, sakrokoksigeal teratomların %71'i kız hastalarda saptandı ve bu bulgular literatürle uyumlu bulundu.

Klinik prezentasyon ve prognoz teratomun bulunduğu bölgelere göre değişmekle birlikte baş boyun teratomları genellikle perinatal periodda başvurmaktadır ve perinatal mortalite ve morbidite açısından yüksek riske sahiptir. Retroperitoneal teratomlar ise sıklıkla yaşamın ilk yılında palpabl abdominal kitle ile saptanırlar. Testis teratomları erkek bebeklerde ağrısız skrotal kitle ile, over teratomları ise kız hastalarda tipik olarak ağrılı abdominal ya da pelvik kitle ile başvurmaktadır. Over teratomlu hastaların ilk başvurusunda over torsiyonu yaklaşık %25 olguda mevcuttur. Sakrokoksigeal teratomlar ise genellikle doğumda büyük ekzofitik kitle sebebiyle tanı almaktadır (61).

9-15 yaş arası 58 over teratomlu olgunun tarandığı bir çalışmada en sık kronik şikâyetler ile başvuru mevcutken, hastaların %58,6'sında ilk başvuru şikâyetinin karın ağrısı, ikinci sıklıkta %44,8 ile palpabl kitle varlığı olduğu saptanmıştır (62). Çalışmamızda hastalarımızın başvuru şikâyetleri over teratomlarında en sıklıkla %66,6 karın ağrısı, ikinci sırada ise %19 oran ile kusma idi.

Testis teratomlarının çoğu ağrısız skrotal kitle şikâyeti ile başvurmaktadır. "American Academy of Pediatrics" tarafından yapılan prepubertal testis tümörlerinde başvurunun sıklıkla hasta, aile ya da sağlık çalışanı tarafından fark edilen ağrısız, sert kıvamlı testiküler kitle ile olduğu belirtilmektedir. Ancak ekstratestiküler kitle (örneğin epidermal kist) ile ayrımın iyi yapılması gerektiği vurgulanmaktadır (62).

Çalışmamızdaki 3 skrotal teratomun başvuru şikâyeti %66,6'sında skrotal şişlik, %33,3'ünde ise başka bir sebeple yapılan ultrasonda insidental saptanan kitleydi.

Teratomlar prenatal dönemde de tanı alabilmektedir. Prenatal ultrasonun yaygın kullanımı ile doğumdan önce tanı konulan teratom yüzdesi belirgin şekilde artmıştır. Sakrokoksigeal teratomların çoğunluğu, 22. ve 34. gebelik haftaları arasında saptanabilmektedir (34). Prenatal tanı alan kistik kitleler sıklıkla baş boyun bölgesi ve sakrokoksigeal bölge teratomlarıdır. Baş boyun teratomları genellikle kitle boyutu ve eksternal yerleşim ile paralel olarak prenatal tanı almakta ve bası bulgularına göre ex utero intrapartum tedavi (EXIT) için hazırlığa olanak sağlamaktadır (63). Neonatal dönemde tanı alan 33 hastamızın 25'i (%75,7) prenatal tanılı idi; prenatal tanı alan olguların %12'si baş boyun bölgesi; %4'ü retroperitoneal, %84'ü ise sakrokoksigeal yerleşimliydi. Çalışmamızda yer alan 3 baş boyun teratomlu olgunun tümü prenatal tanılı olması sebebiyle EXIT için hazırlık yapılması mümkün olmuştur.

20 hastalık bir sakrokoksigeal teratom serisinde %45 prenatal tanılı, %45 doğumda ve %10 neonatal dönem sonrası tanı alan olgu olduğu bildirilmiştir (64). Wang ve ark. yaptıkları çalışmada, sakrokoksigeal teratom tanısı olan 105 olgunun %20,6'sının prenatal takipli olmak üzere %27'sinin yenidoğan döneminde, %33,3'ünün süt çocuğu döneminde, %39'unun ise sonraki yaşlarda tanı aldığını bildirmişlerdir (54). Bu çalışma ile kıyaslandığında, yenidoğan döneminde tanı alan olgularımızın %75,7'sinde prenatal tanı bulunması sebebiyle erken dönem tanı ve tedavi alan hasta sayımız belirgin yüksek bulunmuştur. Bu erken tanı oranları, hastanemizde sistematik çalışan perinatoloji ünitesinin bulunmasının önemini vurgulamaktadır. Serimizdeki sakrokoksigeal teratom tanılı 38 hastamızın %55,2'sinde prenatal tanı mevcuttu, antenatal tanısı olmayan yenidoğan sakrokoksigeal teratom olgularının tümü (%39,4) gluteal bölgede şişlik şikâyeti ile başvuru sonrası tanı alarak opere edildi.

Varma ve ark. yaptığı 8 yıllık retrospektif çalışmada gonadal teratomlarda taraf değerlendirildiğinde özellikle over yerleşiminde sağ tarafın çoğunlukta olduğu gösterilmiştir (65). 956 over teratomu ile yapılan bir yetişkin çalışmasında sağ, sol ve bilateral yerleşimin oranları sırası ile %44,5, %44,9 ve %6,5 bulunmuştur (66). Unilateral over teratomları sıklıkla (%72,2) sağ taraf yerleşimlidir (67). Acien ve ark. yaptığı 174 over teratomlu seri çalışmasında ise taraf belirtilmeyen 52 hasta dışında %32,1 sağ, %26,4 sol ve %11,4 bilateral teratom lokalizasyonu olduğu ve sağ taraf olguların sayıca fazla olmasına rağmen istatistiksel olarak anlamlı fark olmadığı belirtilmiştir (68). Kistik teratomların daha çok sağ overde (%72,2) yerleşim gösterdiği

sonucuna varan başka bir çalışmada ise çeşitli genetik ve çevresel faktörlerin buna sebep olabileceği, aynı zamanda sağ adneksiyal bölgede boşluğun daha fazla olması, sol tarafta sigmoid kolonun alanı doldurması sebebiyle sağ lezyonların daha erken tanı alabildiğine dair teoriler ifade edilmektedir (69). Barksdale ve ark. yaptığı çalışmada ise over teratomlarının sağ-sol taraf farkı göstermediği, bilateral görülme ihtimalinin ise %10 olduğu belirtilmiştir (61). Çalışmamızda lateralite değerlendirildiğinde ise sırası ile sağ over teratomu %52,3, sol %38, bilateral ise %9,5 oranında saptanmıştır. Over teratomlarında sağ yerleşimin baskın olduğu görüldü ve bu bulgular literatür bulguları ile uyumlu bulundu.

Testis tümörlerinde tarafın değerlendirildiği 230 olgulu ve %53,7 oranında matür-immatür teratom içeren bir çalışmada ise benign tümörlerde %51,6 oranında sol yerleşim, %47,6 oranında ise sağ yerleşim saptanmıştır (70). 422 skrotal germ hücre tümör tanılı hasta ile yapılan bir yetişkin taramasında ise sağ - sol oranları sırasıyla %47,6 - %47,4 oran ile benzer bulunmuştur. Bu çalışmada sadece tümör boyutlarında lateralitenin anlamlı olduğuna dair bir sonuç elde edilmiş ve sol taraf teratomlarında tümör boyutunun anlamlı olarak daha büyük olduğu tespit edilmiştir (70). Bizim çalışmamızdaki tüm testis teratomları benign ve sol taraf yerleşimli idi. Testis teratomlu olgu sayımızın az olması sebebiyle, taraf oranları literatür ile uyumlu bulunmamıştır.

Teratomların tanı ve takibinde en çok kullanılan serum markeri alfa-fetoprotein (AFP) düzeyidir. Fetal karaciğer, en büyük AFP kaynağıdır; yolk sak da erken fetal gelişim sırasında AFP sentezinde aktiftir. AFP yolk sak kesesi kaynaklı tümörlerin iyi bir belirteçidir (71,72). Serum AFP mutlak düzeyi başlangıçtaki malignite derecesi ile ilişkili olabilirken, AFP seviyelerindeki eğilimleri takip etmek rezeksiyon sonrası tümör nüksünü izlemek için yararlıdır (73). Deborah ve ark. yaptığı 25 yıllık 142 olgudan oluşan bir çalışmada preoperatif AFP değerlerinin malign teratomlu 4 hastada, 19 matür teratomun 1'inde ve 6 immatür teratomun 3'ünde yüksek olduğu saptanmış ve 1 hastada malign transformasyon görülmüştür (74).

Sakrokoksigeal teratomlar genellikle doğumda veya bebeklik döneminde teşhis edilir. Bu dönemde serum AFP düzeyi normal olarak yüksektir, çünkü AFP yolk sak kesesi, fetal karaciğer ve fetal gastrointestinal sistem tarafından üretilir. Bu nedenle, yüksek AFP seviyesinin doğumda veya bebeklik döneminde dikkatli bir şekilde yorumlanması gereklidir. Normal olarak, artmış serum AFP seviyesi doğumdan yaklaşık 8 ay sonra azalır ve yetişkin seviyesine geriler. Bu tümör markerini doğru yorumlayabilmek için seri takip seviyeleri ölçülmelidir (13). Ameliyat edilen tüm

SKT'li olguların, tümör nüksü açısından ameliyattan sonra en az 36 ay süreyle ve 2 ay aralıklarla kan AFP düzeyleri ve rektal muayene ile izlenmeleri gereklidir (75). Çalışmamızda sakrokoksigeal teratom olgularının preoperatif dönemde AFP değeri, tetkikleri alınan 22 hastanın 19'unda (%86,3) yüksek saptandı. Bu hastaların 4'ünde immatür teratom mevcuttu. Hastalarımızda yüksek AFP saptanan 19 hastanın 15'i (%78,9) matür teratom tanılı hastalardı ve 2'si dışındakilerin yenidoğan döneminde olması sebebiyle AFP değerinin normalden yüksek sonuçlanmasının fizyolojik olabileceği düşünüldü. AFP değeri normal aralıkta olan %13,6 hasta ise geç dönem tanı alan olgulardı (ortalama 4-5 yaş).

Niramiş ve ark. yaptığı çalışmada 8 aydan önce opere edilen 33 hastanın AFP değeri 125,6 - 179,185 ng/ml aralığında değişmekte olup normal değerın üzerinde, 8 aydan sonra opere edilen 8 hastada ise normal aralıkta olduğu saptanmıştır. Bu çalışmada yüksek AFP değeri olan hastaların normale dönüş süresi operasyondan 8 ay sonra olduğu belirtilmiştir ve çocukluk çağındaki hastalarda normal AFP değerleri saptanmıştır (39). Başka bir retrospektif çalışmada ise AFP seviyelerinin ilk 8 ay yüksek olabileceği ve teratom rezeksiyonu sonrası AFP'nin normale dönmesi için gereken ortalama sürenin yaklaşık 9 ay olduğu belirtilmektedir (76,77). Hussam ve ark. yaptığı çalışmada 6 ay ile 5 yıl arası süren takiplerde, AFP seviyelerinin 3-9 ayda normal değere gerilediği gösterilmektedir (64). Çalışmamızda sakrokoksigeal teratomlu olgularda ortalama AFP değerleri 43.756 ng/dl olup postoperatif AFP değerlerinin normale dönüş süresi ortalama 8,5 aydı (3-15 ay).

9 immatür 11 matür teratomla yapılan bir çalışmada immatür teratomlarda preoperatif ortalama AFP değerinin 80.800 ng/dl, matür teratomlarda 24.400 olmak üzere immatür teratomlarda daha yüksek olduğu saptanmıştır (78). Operasyon sırasında 3-45 günlük olan immatür teratomlu 4 olgunun AFP değerinin 1.000-50.000 ng/ml arasında değiştiği saptanan bir çalışmada, hastaların 1 yaşında AFP değerlerinin normal aralığa gerilediği görülmüştür (39). Çalışmamızda immatür teratomlu olguların AFP değerleri ameliyat öncesi ortalama 76.431 ng/dl (5,4-160.548), matür teratomlu olguların 21.224 ng/dl (1-183.924 ng/dl) olmak üzere ortalama AFP değeri immatür teratomlu olgularda literatür ile uyumlu olarak daha yüksek bulundu; iki grupta da nüks gözlenmedi.

Bilmire ve ark. yaptığı 142 hastalık taramada β -HCG ve AFP yüksekliğinin malignite göstergesi olabileceği ancak benign teratomlu hastaların çoğunda bu değerlerin referans aralıkları içinde olduğu ifade edilmektedir (74). Gonadal teratomlu

olgularımızın tümü benign teratoma sahipti ve ortalama AFP değerleri 2,4 ng/dl olmak üzere tüm hastalarda AFP değerleri normal sınırlar aralığındaydı.

Gonadal teratomlar için, β -HCG ve daha nadir olarak karsinoembriyonik antijen (CEA) embriyonik malignite belirteçleri olarak kullanılmıştır. β -HCG ve CEA tespit edildiğinde, yolk sak tümörde olduğu gibi ekstraembriyonik bileşen var olabilir (79). Bu belirteçler, matür teratomlu hastalarda bile nüks veya malign transformasyonu öngörmede tamamen güvenilirdir ve uzun süreli takip için önerilmektedir (80). Çalışmamızda gonadal teratomlarda β -HCG değeri normal sınırlar aralığındaydı. Sakrokoksigeal teratomlu 8 (%21) hastanın preoperatif β -HCG değeri yüksek bulundu; bu hastaların %37,5'i patolojik incelemede immatür teratoma sahipti. %25'inde ise operasyon sonrası β -HCG normal değerlere geriledi.

Gonadal teratomların tanısında ultrason ucuz ve kolay ulaşılabilir olması sebebiyle önemli bir görüntüleme yöntemidir. Over teratomlarında ultrasonda iki ya da daha fazla karakteristik özelliğin saptanması yüksek prediktif değerde tanı koydurucudur (67). Mais ve ark. matür kistik teratom tanısında, ultrasonun %58 duyarlılık ve %99 özgüllüğü olduğunu saptamışlardır (81). Ultrasonun testis malignitesinde %92-98 duyarlılığa ve %95-99,8 özgüllüğe sahip olduğu gösterilmiştir (82). Olgularımızın tümünde kitleler ultrason ile saptanmıştır.

Gonadal teratomların tedavisinde gonad koruyucu cerrahi ile eksizyon yapılması önerilmektedir (83-85). Ancak olası bir yolk sak komponenti açısından dikkatli olunmalıdır ve mümkünse “frozen” eşliğinde operasyon yapılmalıdır. Jinekoloji operasyonlarında intraoperatif konsültasyonun değerini araştıran Wang ve arkadaşlarının serisinde 15 malign germ hücreli over neoplazmi yer almaktadır; bir disgerminom olgusu hariç tümüne “frozen” kesit ile tanı konulmuştur (54). Fırat ve arkadaşlarının yaptığı çalışmanın sonuçları, overin germ hücreli neoplazmlarında, intraoperatif konsültasyonun güvenle kullanılabileceğini göstermektedir (86).

Over teratomları çocuklarda en sık görülen over tümörleridir ve çoğunlukla matür patolojidedir. Son çalışmalara göre, matür teratom saptanması durumunda over koruyucu prosedürler önerilmektedir (87). Çalışmalar tek taraflı salpingo-oforektomi yapılan adölesanlarda üreme morbiditesinin arttığını göstermiştir, çünkü bu hastalarda yaşam boyu %15'e varan oranda kontralateral torsiyon veya over neoplazisi gelişme riski mevcuttur, azalmış over rezervi sebebiyle infertilite kliniğine başvuru daha yaygındır. 5-21 yaş arası 165 benign over patolojisine sahip vakanın dâhil edildiği bir çalışmada pediatrik cerrahların opere ettiği dönem ile jinekologların operasyona dâhil

olduğu iki dönem kıyaslandığında, sadece pediatrik cerrahların opere ettiği olgularda ooferektomi oranının 8 kat daha fazla olduğu (%45) saptanmıştır. Bu çalışmada genç yaş, iskemik görünüm, torsiyon ve matür teratom varlığı ooferektomi ile yüksek ilişkili bulunmuştur (88). Over teratomu sebebiyle opere edilen 21 hastamızdan eksize edilen 23 teratom materyalinin tümü matür teratom uyumlu olmasına rağmen %42,8 hastada torsiyon, overin nekrotik görünümü ve viable over dokusu görülmemesi sebebiyle ooferektomi yapıldı.

Sakrokoksigeal teratomlar lezyonu internal ve/veya eksternal komponentinin derecesine göre tiplere ayıran Altman sınıflandırması ile tiplendirilirler (89). Doğumda görülen sakrokoksigeal teratomlar genellikle Altman Tip I ve II'dir (%87). Yenidoğanlarda nadiren Tip III de görülebilir. Tip IV eksternal bir bileşen olmadığından, tipik olarak yaşamın geç döneminde görülür (57). Ortalama operasyon yaşı 10,2 ay olan 105 sakrokoksigeal teratom tanılı hastadan oluşan bir çalışmada; Tip I %46,7, Tip II-III %37,2, Tip IV ise %14,3 oranında saptanmıştır (54). Sıklıkla Tip I (%71) görülmesi sebebiyle çalışmamız da benzer oranlara sahiptir. Ancak literatürde Tip IV görülme sıklığı erken çocukluk döneminde nadirdir ve bizim çalışmamızda sakrokoksigeal teratomlarda ortalama operasyon yaşı 5,2 ay ile düşük olmasına rağmen Tip IV olgularımızın oranı literatüre göre yüksek bulunmuştur. Çalışmamızdaki sakrokoksigeal teratom tanılı 38 olgunun Altmann sınıflamasına göre dağılımları %71 Tip I, %10,5 Tip II-III, %18,4 Tip IV teratom olup; Tip IV olan 7 olgunun ortalama başvuru yaşı 13,1 ay (1 gün-4,5 yaş) idi.

Sakrokoksigeal teratom cerrahisinde ana prensip kitle ile birlikte koksiksin çıkarılması ve tümör yayılımından sakınılmasıdır (90). AbouZeid ve ark. *chevron* insizyonun kozmetik olarak kötü sonuçlar vermesi sebebiyle küçük kitlelerde vertikal insizyonun sonuçlarının iyi olduğuna dair bir çalışması mevcuttur; bu çalışmada 17 hastanın sadece %29'unda *chevron* insizyon diğerlerinde ise posterosagittal insizyon tercih edilmiş, konservatif tedavi edilen bir hasta dışında vertikal insizyonun herhangi bir komplikasyonuna rastlanmamış ve kozmetik sonuçlarının daha iyi olduğu raporlanmıştır (91). Celayir ve arkadaşları da posterosagittal insizyonla tedavi edilen Tip IV kitleli olgulardan oluşan bir seri sunmuştur (20). Çalışmamızda %15,7 olgu posterosagittal insizyon ile opere edilerek total kitle ve koksiks eksizyonu yapıldı.

Literatürde insizyon altında sıvı birikimini engellemek için penroz dren kullanımının uygun olduğu, postoperatif 4. gün alınabileceği, hastanın postoperatif dönemde insizyon iyileşene ve dren çekilene dek yüzüstü yatırılarak takip edilmesi ve

bu sayede insizyon bölgesinin idrar ve gaita ile minimal teması olacağı belirtilmektedir (92). Çalışmamızda *chevron* insizyonla opere edilen 30 (%78,9) hastanın tümüne operasyon sırasında cilt altı/presakral bölgeye dren konulmuş olup ortalama dren kalış süresi 4,6 (2-8) gündü. Bu 30 olgudan 2'sine iki adet dren konması gerekmişti.

Niramiş ve ark. yaptığı sakrokoksigeal germ hücreli tümörlerin retrospektif taramasında olguların %84'ünde ilk operasyonda tümör ile koksiks eksizyonu yapıldığı, ancak çalışmadaki 41 matür teratom olgusunun tümünde koksiks eksizyonu yapılmış olduğu halde gelişen %7,3 nüksün tümör yayılımına bağlı olduğu saptanmıştır (39). Birçok çalışmada rekürrens oranının %10-21 arasında olduğu ve tümör eksizyonundan sonra 3 yıl içinde geliştiği bildirilmektedir (32,93). Benign teratomlarda ise %7 oranında nüks görülebilmektedir. Bu yüzden 5 yıllık süre boyunca seri AFP monitorizasyonu ile hastaların yakın takip altında tutulması gerektiği bildirilmiştir (39). Koksiks çıkarılmasında başarısızlık durumunda %30-40 rekürrens insidansı mevcuttur ve vakaların %50'den fazlasında malignleşme bildirilmektedir (51).

Serimizdeki teratom vakalarından; bir hastanın peroperatif kardiyak arrest olması, bir hastada sakral agenezi olması ve bir hastanın da operasyondan sonra erken dönemde kaybedilmesi sebebiyle bu üç hasta hariç tutulduğunda, hastaların %92,1'inde hastanın ilk operasyonunda kitle eksizyonu ile birlikte koksiks eksizyonu yapılmıştı. Bir hastanın ilk operasyonda kitlesinin duplikasyon kisti düşünülmesi ve başka bir hastasında nüks ile başvuru sonrasında olmak üzere, %5,2 hastada ise ikinci operasyonda koksiks eksizyonu yapılmıştır. Hastanemizde pediatrik onkoloji bulunmaması sebebiyle hastaların birçoğu operasyon sonrası geç dönemde genellikle takipten çıkmaktadır, ancak postoperatif dönemde ilk 3 yıl izlenen tüm hastalarımızın, 3 yaşında tanı alan ve opere edilen olmak üzere sadece birinde nüks geliştiği bilinmektedir, bu da hastanın ilk operasyonunda koksiks eksizyonu yapılmamasına bağlanmıştır.

Hussam ve ark. yaptığı çalışmada sakrokoksigeal teratomlu hastalarda eşlik eden anomali %15 hastada saptanmış, bunlardan %66'sı imperfore anüs iken %33'ü sol primer megaüreter olarak raporlanmıştır (64). 19 hastalık uzun dönem sonuçların incelendiği bir çalışmada %26,3 hastada eşlik eden anomali bulunmuş ve tüm hastalarda ürolojik patoloji olmak üzere %80'inde nörojenik mesane, %60 hidronefroz ve daha düşük oranda VUR ve ürogenital sinüsün primer patolojiye eşlik ettiği saptanmış (94). Çalışmamızda %31,5 hastada teratoma eşlik eden bir patoloji mevcuttu, en sık görülen ek anomaliler %7,8'er hasta ile renal ektazi ve hipotiroidi idi. %2,6 hastada OEİS

sendromu, %2,6 hastada rektal ekstrofi ve split notokord sendromu, %2,6 hastada ürogenital sinüs eşlik etmekteydi.

Barakat ve ark. yaptığı 22 vakalık sakrokoksigeal teratomlu retrospektif çalışmada 7 hastaya (%31,8) abdominosakral eksizyon sırasında geçici kolostomi açılmıştır (95). Wakhlu ve ark.'nın yaptığı 72 olgu içeren ve yüksek oranda Altman Tip IV tümör içeren çalışmada ise morbiditeyi azaltmak için dev Tip III-IV teratomu olan 11 hastaya (%15,2) kombine abdominosakral eksizyon öncesi kolostomi açılmıştır. Bu hastaların 8'ine malign olması sebebiyle kemoterapi sonrası rezidü tümör dokusu eksizyonu ile birlikte kolostomi kapatılması yapılmıştır (96). Çalışmamızda üç hastaya kitle eksizyonu ile birlikte ikisinde rektuma yapışıklık, birinde split notokord sendromlu rektal ekstrofi olması sebebiyle kolostomi açılmış olup bu hasta dışındakilerin stoması ilk operasyondan 6 ay sonra kapatılmıştı.

Matür ve immatür içerikler malign olmayan dokulardır ve metastatik potansiyelleri belirsizdir. Matür teratom, immatür teratomdan daha sık görülür. 52 vakalık bir çalışmada, patoloji sonuçları malign, immatür ve matür olarak sınıflandırıldığında oranlar sırası ile %23, %9,6, %67,4 bulunmuştur (58). Yoon ve arkadaşlarının yaptığı sakrokoksigeal teratomlu olguları içeren bir çalışmada histolojik inceleme sonucunda matür teratomların sakrokoksigeal germ hücreli tümörlerin yaklaşık %50-60'ını, immatür teratomların %18-34'ünü, malign teratomların ise yaklaşık %12-14'ünü oluşturduğu saptanmıştır (13). Çalışmamızda 68 hastada 70 teratom materyali değerlendirildi, eksize edilen kitlelerin histopatolojik incelemesinde %17,6'sı immatür teratom, %79,4'ü matür teratom olarak raporlanmıştı. 10 (%14,7) sakrokoksigeal, 2 (%2,9) retroperitoneal teratomlu hastada olmak üzere %17,6 hastada immatür dokular mevcuttu; bu olguların dışında %2,9 sakrokoksigeal teratom olgusunda matür dokunun yanında endodermal sinüs tümörünün de olduğu görüldü. Matür-immatür teratom olgularımızın literatür ile benzer oranlarda olduğu ancak malignite oranlarımızın literatürden daha düşük olduğu saptandı.

Neonatal dönemde sakrokoksigeal teratomların %90'ı benignidir (32). Sakrokoksigeal teratomun malign bileşeninin histolojisi hemen hemen her zaman yolk sak tümördür. Tümörün malign bir bileşeninin görülme sıklığı, tümör tipine bağlı olarak, Tip IV'te %38'e karşın Tip I'de %8'dir (54). Serimizdeki sakrokoksigeal teratomların %94,8'i matür ve immatür olarak benign patolojideydi. Malignitesi mevcut hastalardan 1'i Tip IV (Tip IV teratomların %14,2'si), 1'i Tip II (Tip II-III teratomların %25'i) teratom idi.

104 olgunun opere edildiği 105 hastadan oluşan bir seride %25 malignensi saptanmış ve malignitenin yaş ile orantılı arttığı belirtilmiştir (54). Kızlar erkeklerden iki ila dört kat daha fazla etkilenir, ancak malignite oranları benzerdir. Çalışmamızda erkek hastaların %41,1'i immatür, kız hastaların ise %9,8'i immatür, %3,9'u ise malign idi. Patoloji sonuçları yaşa göre sınıflandırıldığında; patolojisi immatür teratom uyumlu hastalar sırası ile yenidoğan döneminde %33,3, süt çocuğu döneminde %20 idi, malignitesi mevcut hastalar ise çocukluk çağı grubunun %6,6'sını oluşturmakta idi. Çalışmamızda kız hastaların malignite oranlarının literatürün aksine erkek hastalardan yüksek olduğu, malignitenin yaş ile orantılı artmasının ise literatür ile uyumlu olduğu görüldü.

Sakrokoksigeal teratomlu olguların prognozu açısından postnatal dönemde boyut, volüm, kitlenin vücut ağırlığına oranları hakkında literatürde pek fazla çalışma bulunmamaktadır. 31 hasta içeren bir çalışmada kaybedilen 7 hastanın tümünün ölüm sebebi yüksek kardiyak output ya da hidrops fetalis olarak bulunmuştur. Total tümör volümü/tahmini fetüs ağırlığı $>0,16$ olan hastalarda hidrops fetalis ya da yüksek kardiyak output durumu gelişme ihtimalinin 17 kat fazla olduğu, solid tümör volüm indeksinin $>0,09$ olmasının ise yine hidrops fetalis ve yüksek kardiyak output için 120 kat daha fazla risk oluşturduğu saptanmıştır (97).

24. gebelik haftası öncesi tümör volümü/fetal ağırlık oranı değerlendirildiğinde oranı 0,12'ye eşit ya da küçük olan hastalarda 0,12'den büyük olanlara göre prognozun çok daha iyi seyrettiği, hidrops gelişen dört hastanın da tümör volüm/fetal ağırlık oranı $>0,12$ olduğu saptanmıştır (98). Yine tümör volümünün fetal ağırlığa oranının değerlendirildiği 24 hafta ve daha küçük 59 sakrokoksigeal teratomlu fetüsün dahil edildiği bir çalışmada, tümör volümü/fetal ağırlık oranı (TFR) $>0,12$ olan olgularda perinatal prognozun TFR $\leq 0,12$ olan fetüslere göre daha kötü seyrettiği bildirilmiştir (99). Çalışmamızda tahmini fetüs ağırlıkları yerine hastaların doğum ağırlıkları (bebek+kitle ağırlığı) kullanılarak kitle volümü/doğum ağırlığı oranı hesaplanmıştır. Kaybedilen olgularda oranın 0,37, yaşayan olgularda ise 0,09 olduğu, yaşayan grupta bu oranın belirgin düşük olduğu, kitle volümü/doğum ağırlığı oranı $<0,10$ olan hastalarda mortalitenin daha az olduğu saptandı ve bu oran ile mortalite arasındaki ilişki istatistiksel olarak anlamlı bulundu. ($p=0,002$; $p<0,05$) Kitle volümü/doğum ağırlığı ile mortalite arasındaki ilişkinin istatistik sonucu Tablo 15'te özetlenmiştir.

Literatürde hastaların kitle boyutları verilen çalışmalarda, kitlenin boyut arttıkça rüptür ve kanama riskinin artması, kardiyak outputun artarak hastanın kardiyak yetmezliğe

girmesi nedeniyle daha mortal seyredeceği bildirilmektedir ve bu durum teratom boyutları ile eksitus arasında bir paralellik olduğunu göstermektedir. Çalışmamızdaki eksize edilen kitle hacimleri yaşayan ve eksitus olan olgularda kıyaslandığında, sırasıyla ortalama 430 ml (6-2667 ml), 1780 ml (713-4445 ml) olmak üzere, kaybedilen olguların kitle hacminin yaşayanlara göre yaklaşık 4 kat fazla olduğu ve bu farklılığın istatistiksel olarak anlamlı olduğu bulundu ($p=0,039$; $p<0,05$). Çalışmamızdaki büyük kitlenin olguların daha mortal seyretmesi literatür bulguları ile uyumlu idi. Literatürde postnatal dönemde kitle hacminin ve ağırlığının hesaplandığı çalışma sayısı çok az olduğu için kesin olmamakla birlikte teratom kitlesi boyutu ve ağırlığı ile mortalite arasında bir ilişki olduğu söylenebilir. Kitle boyutu ile mortalite arasındaki paralellik, büyük kitlenin kardiyak outputu artırarak kardiyak yetersizliğe neden olması ile veya daha kolay rüptüre olması ile açıklanabilir.

Kardiyak yetmezliğin yanında, preterm doğum da kötü prognoza katkıda bulunan en büyük sorunlardan biridir. Eğer intrauterin müdahale yapılamayacaksa maternal ve fetal mortalite riski durumunda prematüriteye rağmen hasta doğurtulabilmektedir (100). Prematüritenin sakrokoksigeal teratom üzerine doğrudan net etkileri olmamakla birlikte pulmoner gelişimin yetersiz olması, kardiyak problemler gibi prematüriteye eşlik eden anomaliler de mortaliteyi artırmaktadır. Çalışmamızda da eksitus olan grubun ortalama doğum haftasının 33,1, yaşayan grubun ortalama doğum haftasının ise 37 olduğu, prematüritenin mortalite üzerine etkisinin istatistiksel olarak anlamlı olduğu bulundu ($p=0,036$; $p<0,05$). Literatürde sakrokoksigeal teratomlarda doğum haftasının mortalite üzerine etkisine dair yeterli seri çalışması bulunmamaktadır.

Uchiyama ve ark. yaptığı çalışmada, eksize ettikleri 4 teratom olgusu değerlendirildiğinde, kistik materyal aspirasyonu hariç ortalama 333,7 gram ağırlığında kitle eksizyonu yapıldığı sonucu çıkarılmaktadır (94). Çalışmamızda, hastaların preoperatif tartılarından postoperatif tartıları düşüldüğünde ortalama kitle ağırlıkları kaybedilen grupta 2866 gr, yaşayan grupta 706 gr, tüm hastalarda ortalama 1077 gr (10 gram-7556 gram) olduğu tespit edilmişti. Kaybedilen olgulardaki kitle ağırlığı, kitle volümü ile doğru orantılı olarak yaşayan olgulardan daha fazlaydı ve kitle ağırlığı ile mortalite arasındaki ilişkinin istatistiksel olarak anlamlı olduğu saptandı ($p=0,005$; $p<0,05$).

Sakrokoksigeal teratomlu 29 yenidoğan hastada kaybedilen grubun kitle ağırlığı ve kitleyle bağlantılı olarak doğum ağırlığı fazla idi, kitle ağırlığının doğum ağırlığına oranı, yaşayan ve kaybedilen olgularda kıyaslandığında, eksitus grubunda 0,57; yaşayan

grupta 0,15 olmak üzere eksitus grubunda oranın daha yüksek olduğu bulundu. Çalışmamızda; büyük kiteli hastaların kardiyak yetmezlik ve rüptür, hidrops riski taşımaları sebebiyle kitle ağırlığı/doğum ağırlığı $>0,15$ olan hastaların daha mortal seyretmekte olduğu saptandı. Kitle ağırlığı/doğum ağırlığı ile mortalite arasındaki ilişki değerlendirildiğinde sonuç istatistiksel olarak anlamlı bulundu ($p=0,002$; $p<0,05$). Literatürde kitle ağırlığı ile mortalite arasındaki ilişkiyi değerlendiren yeterli sayıda çalışma bulunamamıştır, daha büyük serilerde kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranı hesaplanarak, postnatal hastalar için prognoz belirlenmesi açısından niceliksel bir veri elde edilebileceği ve standardizasyon sağlanabileceğini düşünmekteyiz.

Teratom olgularında kan ve/veya kan ürünleri replasmanı ihtiyacı yüksek oranlarda olmaktadır, bu ihtiyacın genellikle tümör boyutları arttıkça kardiyak outputun fazla olmasına ve eksizyon sonrası vücut kan volümünün belirgin azalmasına paralel olarak arttığı düşünülmektedir. Gestasyonel yaşı >30 hafta ve Altman Tip III-IV teratomu olan hastaların transfüzyon ihtiyacının azaldığı, nonkistik tümörlerde transfüzyon volümünün arttığı gözlenmiştir. Sonuçta prematüritenin genel olarak mortaliteyi artırdığı, nonkistik tümör morfolojisinin transfüzyon volümüne dair tek önemli faktör olduğu ve kaybedilen 6 hastaya ortalama 240 ml ya da daha fazla transfüzyon yapıldığı saptanmıştır. Kaybedilen hastaların 2'sinde preoperatif ve postoperatif dönemde de eritrosit süspansiyonu replasmanı yapılması gerekmiştir. Anestezi ekibinin de bu tip vakalarda masif transfüzyon için hazır bulunması gerektiği bildirilmektedir (101).

Sakrokoksigeal teratomlu hastalarda erken dönem mortalitenin araştırıldığı 235 hasta içeren başka bir çalışmada ise yenidoğan döneminde kaybedilen 9 hastanın 7'sinin tümör ilişkili hemoraji sebebiyle ya da kardiyak yetmezlik sebebiyle kaybedildiği bildirilmiştir. Sakrokoksigeal teratomlu yenidoğanlarda hemorajik mortalite %3,8 ile yüksektir ve tüm yenidoğan mortalitesinin yaklaşık %70'ini oluşturmaktadır (102). Çalışmamızda sakrokoksigeal teratomlu yenidoğanlarımızın %55,1'inde preoperatif, peroperatif veya postoperatif kan veya kan ürünleri replasmanı yapıldı; bu olgulardan %25'i kaybedildi, %75'i yaşadı. 38 sakrokoksigeal teratom olgusunun 4'ü cerrahi işlem sonrası aynı gün, biri ise postoperatif 3.gün olmak üzere 5'i (%12,5) kaybedildi. Kaybedilen olguların %80'i erkekti, ortalama doğum haftası 33,1 hafta olup ortalama kitle boyutu 15,4x13,3x12,1 cm idi. 4 hastada eritrosit süspansiyonu, trombosit süspansiyonu, taze donmuş plazma ve kriopresipitat olmak üzere kan ve kan ürünü replasmanı yapılmıştı. Kaybedilen yenidoğanların %80'inde, yaşayanların ise

%50'sinde kan ve/veya kan ürünü replasmanı yapılmış olmasına ve kaybedilen olguların daha yüksek replasman ihtiyacı olduğu saptanmasına rağmen; transfüzyon ile yaşam oranı arasında istatistiksel olarak anlamlı bir ilişki saptanmadı. ($p>0,05$)

Ortalama kitle volümü ve ağırlığı, dolayısıyla kitle volümü/doğum ağırlığı (0,36) ve kitle ağırlığı/doğum ağırlığı (0,58) oranları yüksek olan hastalarda kan transfüzyonu yapılması gerekmiştir. Literatürde, transfüzyon ihtiyacı olan hastaların kitle boyutlarının daha büyük olduğu ve transfüzyon yapılmayan hastalara göre daha mortal seyrettiği bilinmektedir. Transfüzyon yapılan hastaların kitle ağırlığı/doğum ağırlığı $>0,15$ olması bu sonucu desteklemektedir.

Sakrokoksigeal teratom rezeksiyonu yapılan 45 hastadan oluşan retrospektif bir çalışmada %29 anorektal komplikasyon geliştiği bu hastaların 13'ünde şiddetli kronik konstipasyon, 4'ünde fekal inkontinans ayrıca %33 hastada da nörojenik mesane, vezikoüreteral reflü, üriner inkontinans başta olmak üzere çeşitli üriner komplikasyonların geliştiği saptanmıştır. Bu çalışmada postnatal komplikasyonlar; prenatal görüntüleme, prenatal terapötik girişimler, Altman sınıflaması, perineal rekonstrüksiyon ve tümör nüksü ile ilgili obstrüktif bulgular ile ilişkilendirilmiş ve Altman Tip I tümörlü hastalarda anorektal veya ürolojik komplikasyon görülmediği saptanmıştır (103). Çalışmamızda sakrokoksigeal teratomlu hastalarımızın %37,5'inde postoperatif dönemde komplikasyon gelişti ve en sık görülen komplikasyon insizyon detaşmanı ve enfeksiyonu idi. Bu hastaların çoğunluğu, taburculuk sonrası ev takipleri sırasında detaşman gelişerek poliklinikte tanı alan hastalardı. Hastalar geniş spektrum antibiyoterapi ile taburcu edilmelerine rağmen insizyonun gaita ile yakın teması sebebiyle aile bakımının yeterli olmamasının detaşman ve enfeksiyona yol açtığı düşünülmektedir. Poliklinik takiplerine devam eden hastaların %30,7'sinde konstipasyon mevcuttu. Takipteki hiçbir hastada fekal inkontinans saptanmadı. Çalışmamızda konstipasyonu olan 4 hastanın 3'ü Altman Tip I, 1'i ise Tip IV idi.

Cerrahi yapılmadığında mortalite oranı, kitle basısı sendromu ve malign dejenerasyon nedeniyle %80-90'dır (104). Fetal teratom, hidrops fetalis ve yüksek çıkışlı kalp yetmezliğine sebep olarak ölüm riski taşır (105). Literatürde Sathyanarayana ve ark. %7,76, Tapper ve ark. %9 oranında mortalite rapor etmişlerdir (14,106). Serimizde ise %10,2 mortalite oranı mevcuttu. Genel mortalite oranımız literatür sonuçları ile benzerdi.

Bölgesel olarak teratomların mortaliteleri incelendiğinde literatürde baş boyun teratomlarında sıklıkla benign olmalarına rağmen mortalitenin %12,5-23 aralığında

daha yüksek oranda olduğu bildirilmektedir; mortalite sebebi olarak obstrüktif fenomen ile doğum ya da yüksek kardiyak outputa bağlı gelişen hidrops ile doğum gösterilmektedir (107). Baş ve boyun bölgesindeki teratomlar nadirdir (bildirilen tüm teratomların %2-9'u), çoğunluğu servikal bölge yerleşimlidir ve orofarinkste daha da nadir görülür. Her ne kadar teratomlar iyi huylu histopatolojik yapıya sahip olsalar da, yenidoğan döneminde en sık görülen solunum sıkıntısı nedenlerinden biri olan üst solunum yolu basısı nedeniyle yaşamı tehdit edici olabilirler. Kist içine kanama ile aniden boyutlarını artırabilir, kitle basısı ile solunumu aniden kötüleştirebilir ve yaşamı tehdit eden hava yolu tıkanıklığına neden olabilirler (104). Son yayınlarda ise baş boyun bölgesi teratomlarında %33 mortalite oranı bildirilmektedir (108). Fasyal kemiklerin deformasyonları da hızla gelişebilir ve fonksiyonel prognozu tehlikeye atabilir. Kaybedilen hastalarımızın 1'i postmortem biyopsisi matür teratom olarak sonuçlanan dev servikal teratomlu, diğeri ise doğumdan birkaç saat sonra eksitus olan dev orofarengeal teratomlu olgu olmak üzere baş boyun yerleşimli teratoma sahipti. Çalışmamızda baş boyun teratomlarında mortalite oranı %66 ile literatüre göre oldukça yüksekti. Yüksek mortalite oranı örneklem grubumuzun küçük olmasına bağlandı.

Gonadal teratomlarda ise eşlik eden patoloji bulunmaması halinde tam rezeksiyon sonrası nüksüz sağkalım oranları yüksektir (58). Çalışmamızdaki gonadal teratomlu olguların tümü benign patolojiye sahipti ve mortalite bulunmamaktadır.

Sakrokoksigeal teratomlarda yüksek kardiyak outputa bağlı kardiyak yetmezlik gelişmediği sürece mortalite oranları oldukça düşük bildirilmektedir. 36 sakrokoksigeal teratom ile yapılan bir çalışmada mortalite oranı %8,3 saptanmıştır, ancak tüm olgularda exitusun anesteziye bağlı olduğu raporlanmıştır (109). 20 hastalık başka bir sakrokoksigeal teratom serisinde ise %5 mortalite saptanmış, kaybedilen olgunun malign teratomu olduğu ve adjuvan kemoterapi aldığı bildirilmiştir (64). Prenatal tanı alan hastaların postnatal tanı alanlara göre daha mortal seyrettiği bildirilmektedir (49). Çalışmamızdaki sakrokoksigeal teratomlarda kitle eksizyonu sonrası kardiyak yetmezliğe bağlı kaybedilen olgular bulunması sebebiyle mortalite %13,1 ile yüksek bulunmuştur. Aynı zamanda kaybedilen hastaların %80'inde prenatal tanı mevcuttu.

Sakrokoksigeal teratom ile ilişkili yüksek neonatal mortalite ve morbidite oranları, erken doğum ve malign invazyon, tümör içine kanama, umbilikal akım obstrüksiyonu, yüksek çıkışlı kalp yetmezliği, hidrops fetalis gibi komplikasyonlara bağlanmaktadır. Bu komplikasyonların bazıları doğum öncesi tespit edilebilir ve uygun şekilde tedavi edilebilir (50).

6. SONUÇ

Kliniğimizde tedavi edilen 68 teratom olgusunun %4,4'ü baş-boyun, %1,4'ü torakoabdominal, %35,2'si gonadal, %2,9'u retroperitoneal, %55,8'i sakrokoksigeal yerleşimliydi. Olguların %10,2'si kaybedildi. Kaybedilen olgular baş-boyun ve sakrokoksigeal bölge yerleşimliydi.

Sakrokoksigeal teratomlu olguların 29'u (%76,3) yenidoğandı; 5'i (%17,2) erken dönemde kaybedildi. Kaybedilen ve yaşayan hastaların sırası ile ortalama doğum haftası 33,1 hafta ve 37 hafta, ortalama kitle volümü 1780 ml ve 430 ml, ortalama kitle ağırlığı 2866 gr ve 706 gr, ortalama kitle volümü/doğum ağırlığı oranı 0,37 ve 0,09, ortalama kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranı 0,57 ve 0,15 idi.

Sakrokoksigeal teratomlu olgularda prematüriteliğin mortaliteye etkisi istatistiksel olarak anlamlı bulundu. Özellikle büyük kitleli hastaların erken doğması sebebiyle olguların düşük doğum haftasına rağmen doğum tartıları yüksek bulundu. Prematüre olmasına rağmen, büyük kitleli kaybedilen bebeklerde kitle ağırlıklarının da yüksek olması sebebiyle ortalama doğum kiloları yüksek bulundu, bu nedenle eksitus ve yaşayan olguların doğum kiloları arasındaki farklılık istatistiksel olarak anlamlı bulunmadı.

Kitle ağırlığının ve kitle volümünün kaybedilen grupta yaklaşık 4 kat kadar belirgin yüksek olması ve istatistiksel olarak sonucun anlamlı olması, büyük hacimli (dolayısıyla ağırlık olarak da fazla olan) kitlelerin prognozunun daha mortal seyredeceğini düşündürmektedir.

Sakrokoksigeal teratomlu yenidoğanlarda, kitle ağırlığı/doğum ağırlığı ve kitle volümü/doğum ağırlığı oranlarının kaybedilen grupta yüksek olduğu bulundu, mortalite ile ilişkilerinin istatistiksel olarak anlamlı olduğu saptandı. Büyük hacim sıklıkla daha ağır bir kitleye işaret etmekte ve vücut kitlesine oranı dolayısıyla yüksek bulunmaktadır. Kitle hacmi, ağırlığı ve her ikisinin doğum tartısına oranından oluşan 4 prognoz belirteci hastanın mortalitesi hakkında bize ön bilgi sağlayabilmektedir.

Sonuç olarak sakrokoksigeal teratomlu yenidoğanlarda kitle, boyutu-volümü ve ağırlığı artıkça daha mortal seyirli olmaktadır. Prenatal dönemde olduğu gibi postnatal dönemde de sakrokoksigeal teratomlu yenidoğan olgular için tanımlanabilecek mortalite kriterleri bulunabilmektedir. Kitle volümü-ağırlığı/doğum ağırlığı oranları bu kriterler

arasında yer alabileceğini düşünmemiz sebebiyle çalıştığımız veriler olup, bizim çalışmamızda mortalite hakkında fikir verebilmektedir. Çalışmamız bu konuda öncü çalışma sayılabilir, ancak bu değerlerin rutin kullanıma geçmesi için daha çok olgu ile yapılacak çalışmalar ile fikir birliği sağlanması ve bir sınır değeri saptanması gerekmektedir.



TABLolar VE GRAFİK

Tablo 1: Teratomların genel özellikleri, ortalama laboratuvar değerleri ve histopatolojik tanıya göre dağılımları

	n:68	%
Cinsiyet	51 Kız 17 Erkek	%75 %25
Ortalama tanı yaşı	8,2 yıl (1 gün-17 yıl)	
Prenatal tanı alan olgu sayısı	25 hasta	%75,7
İlk bir ay içinde başvuran olgu sayısı (prenatal tanısı olan + olmayan hastalar)	33 hasta	%48,5
Geç tanı alan olgu sayısı (>1 ay)	35 hasta	%51,4
Geç tanı alan olguların ortalama tanı yaşı	8 yıl (1,5 ay-17 yıl)	
Ameliyat öncesi ortalama AFP değeri	26.041 ng/dl (1-183.924 ng/dl)	
Ameliyat sonrası ortalama AFP değeri	6.605 ng/dl (0,8-66.916 ng/dl)	
Histopatolojik Tanı	56 matür teratom 12 immatür teratom 2 endodermal sinüs tümörü	%80 %17,1 %2,8
Taburcu edilen olgu sayısı	61 hasta	%89,7
Ex olgu sayısı	7 hasta	%10,2
Ortalama hastanede kalış süresi	6,2 gün (1 gün-26 gün)	

Tablo 2: Teratomların anatomik bölgelere ve cinsiyete göre dağılımları

Lokalizasyon	n:68 (%)	Cinsiyet	
		Kız n:51 (%)	Erkek n:17 (%)
Baş-boyun	3 (%4,4)	2 (%3,9)	1 (%5,8)
Torakoabdominal	1 (%1,4)	1 (%1,9)	
Gonadal	24 (%35,2)	21 (%41,1)	3 (%17,6)
Retroperitoneal	2 (%2,9)		2 (%11,7)
Sakrokoksigeal	38 (%55,8)	27 (%52,9)	11 (%64,7)

Tablo 3: Teratomların lokalizasyonuna göre başvuru şikayetleri

Lokalizasyon	Başvuru Şikayeti	n	%
Baş-boyun n:3	Prenatal tanı	3	%100
Torakal n:1	Sık akciğer enfeksiyonu, ateş, öksürük	1	%100
Over n:21	Karın ağrısı	14	%66,6
	Kusma	4	%19
	Karında şişlik	2	%9,5
	Adet düzensizliği	3	%14,2
	Her iki memede şişlik	1	%4,7
	Meme ağrısı ve kıllanma	1	%4,7
	Kilo alma	1	%4,7
Skrotal n:3	Skrotumda şişlik	2	%66,6
	İnsidental	1	%33,3
Retroperitoneal n:2	Prenatal tanı	1	%50
	Karında kitle	1	%50
Sakrokoksigeal n:38	Prenatal tanı	21	%55,2
	Gluteal bölgede şişlik/kitle	15	%39,4
	İdrar/ gaita yaparken zorlanma	2	%5,2
	Bacak Ağrısı-Rektal Kanama	1	%2,6

Tablo 4: Teratomların lokalizasyonuna göre taraf yerleşimleri

Teratom yerleşim bölgesi	Sağ n:14 (%20,5)	Sol n:12 (%17,6)	Bilateral n:2 (%2,9)	Orta hat n:40 (%58,8)	Toplam
Orofaringeal				1 (%100)	1
Servikal				2 (%100)	2
Torakoabdominal	1 (%100)				1
Over	11 (%52,3)	8 (%38)	2 (%9,5)		21
Testis		3 (%100)			3
Retroperitoneal	2 (%100)				2
Sakrokoksigeal		1 (%2,6)		37 (%97,3)	38
Tümü	14	12	2	40	

Tablo 5: Bař-boyun teratomlarının genel özellikleri

Bař- Boyun Teratomları n:3		%
Cinsiyet	2 kız	%66,6
	1 erkek	%33
Prenatal tanı alan olgu sayısı	3	%100
AFP ortalama değeri	159,209 ng/dl	
Histopatolojik inceleme	3 matür teratom	%100
Exitus	2	%66,6
Taburcu	1	%33,3

Tablo 6: Gonadal teratomların genel özellikleri

Gonadal Teratomlar n:24	Ortalama yakınma süresi	29 gün (1 gün-5 ay)
	Ortalama operasyon yaşı	10,9 yıl (1-17)
	Patoloji sonucu	Matür teratom
	Ortalama hastanede kalış süresi	1,9 gün (1-5 gün)
	Ortalama AFP değeri	2,4 ng/dl
Over Teratomu n:21	Ortalama yakınma süresi	23 gün (1gün-5 ay)
	Ortalama operasyon yaşı	12,3 yıl (7-17 yıl)
	Taraf	11 sağ 8 sol 2 bilateral
	Yüksek tümör marker	1 hastada CA 125; 103U/ml 4 hastada CA 19-9 ortalama; 506,2 U/ml
	Eşlik eden hastalık	1 hastada obezite 1 hastada PKOS
	Ultrasonda lezyon boyutu	84,5 x 64,3 mm (41-300 x 27-200 mm)
	Operasyon	9 ooferektomi (%42,8) 12 kitle eksizyonu (%57,1) 2 karşı overden biyopsi (%9,5) +1 appendektomi (%4,7)
	Operasyon şekli	10 laparotomi (%47,6) 11 laparoskopi (%52,3)
Testis teratomu n:3	Ortalama yakınma süresi	3,5 ay (1-6 ay)
	Ortalama operasyon yaşı	1,3 yıl (1-2 yıl)
	Taraf	3 sol
	Eşlik eden hastalık	1 hastada ipsilateral kordon kisti, 1 hastada kontralateral inguinal herni op
	Ultrasonda lezyon boyutu	24,9 x 19,2 mm (14,7-40 x 8-40 mm)
	Operasyon	2 orşiektomi (%66,6) 1 testis koruyucu cerrahi (%33,3) 1 lenf nodu örnekleme (%33,3)
	Operasyon şekli	İnguinal yaklaşım (%100)

Tablo 7: Sakrokoksigeal teratomların genel özellikleri

Sakrokoksigeal teratomlar n:38			
Cinsiyet		27 kız (%71) 11 erkek (%28,9)	
Taraf		1 sol (%2,6) 37 orta hat (%97,3)	
Prenatal tanı		21 (%55,2)	
Yenidoğan döneminde opere edilen		29 (%76,3)	Ortalama operasyon yaşı; 4.5 gün (1-30 gün)
Geç tanı alan	İlk 1 yıl içinde opere edilen olgu sayısı	5 (%13,1)	
	1 yaşından sonra opere edilen olgu sayısı	5 (%13,1)	
AFP değeri yüksek olan		19 (%86,3)	
Preoperatif ortalama AFP değeri		43.756 ng/dl	
Postop AFP değeri ortalama normale dönüş süresi		8,5 ay (3-15 ay)	
β -HCG değeri yüksek olan		8 (%36,3)	
Postoperatif enteral beslenme başlama süresi		2. gün (0-16 gün)	
Postoperatif ortalama gaita çıkış süresi		1,6 gün (0-4 gün)	
Kan ürünü replasmanı yapılan hasta sayısı		16	
Ortalama hastane yatış süresi		8,8 gün (1-26 gün)	

Tablo 8: Sakrokoksigeal teratomların tiplendirmesi, operasyon şekli ve kitle özellikleri

Altman Sınıflandırması	Tip I	27	%71	Ortalama başvuru yaşı; 13,1 ay (1 gün-4,5 yaş)
	Tip II-III	4	%10,5	
	Tip IV	7	%18,4	
İnsizyon tipi	Chevron	30	%78,9	
	Posterosagittal	2	%5,2	
	Abdominal	2	%5,2	
	Posterosagittal+Abdominal	4	%10,5	
Dren yerleştirilen hasta sayısı		30	%78,9	
Ortalama dren kalış süresi		4,6 (2-8) gün		
Ortalama kitle boyutu		10,4 x 8,6 x 7,2 cm		
Ortalama kitle volümü		662 ml (6-4.445 ml)		
Postoperatif ortalama tartı kaybı		1077 gram (10-7.556 g)		

Tablo 9: Sakrokoksigeal teratomlu olgularda eşlik eden hastalıklar

Eşlik eden hastalıklar	n:12	%31,5
Artrit (ANA+)	1	%2,6
Glanüler Hipospadias	1	%2,6
Renal Ektazi	3	%7,8
Vezikoüretal Reflü, Renal Atrofi	1	%2,6
Böbrek Yetmezliği	1	%2,6
Ürogenital Sinüs, Nörojen Mesane	1	%2,6
OEİS Sendromu	1	%2,6
Rektal ekstrofi, Split Notokord Sendromu	1	%2,6
Hipotiroidi	3	%7,8
Prematürite	1	%2,6
Hiperbilirubinemi	1	%2,6

Tablo 10: Sakrokoksigeal teratomlu olgularda postoperatif komplikasyonlar ve takip özellikleri

Postoperatif komplikasyon	İnsizyonda detaşman	7	%18,4	15	%39,4
	İnsizyondan pürülan akıntı	4	%10,5		
	Rektal prolapsus	1	%2,6		
	Rektal tışedede fibrotik halka	1	%2,6		
	Rektal tuşede sertlik	1	%2,6		
	Anal Stenoz	1	%2,6		
	Dren yerinde kistik lezyon	1	%2,6		
Exitus		5		%12,5	
Kabızlık		4		%30,7	

Tablo 11: Teratomların histopatolojik değerlendirme sonuçları

Histopatoloji sonucu		Olgu sayısı		Preoperatif ortalama AFP değeri
Matür teratom		54 (%79,4)		21.224 ng/dl (1-183.924 ng/dl)
İmmatür teratom	Grade 1	5 (%7,3)	12 (%17,6)	76.431 ng/dl (5,4-160.548 ng/dl)
	Grade 2	1 (%1,4)		
	Grade 3	2 (%2,9)		
	Evresi bilinmeyen	4 (%5,8)		
Endodermal sinüs tümörü		2 (%2,9)		

Tablo 12: Kaybedilen sakrokoksigeal teratomlu olgularının demografik ve klinik özellikleri

Hasta no	Cinsiyet	Doğum haftası	Teratom tipi	Operasyon yaşı	Patoloji	Transfüzyon
10	K	33	Tip I	Pn 1. Gün	İmmatür	2 Ü ES, 1 Ü TS-TDP
13	E	35	Tip I	Pn 1. Gün	Matür	1 Ü ES
29	E	30+6	Tip IV	Pn 1. Gün	İmmatür	
35	E	28	Tip I	Pn 1. Gün	İmmatür	Kriopresipitat
38	E	39	Tip IV	Pn 1. Gün	İmmatür	1 Ü ES-TDP

Tablo 13: Teratomların histopatolojik özelliklerine göre cinsiyet, yaş ve bölge dağılımları

n:68		Matür	İmmatür	Malign
Cinsiyet	Kız	44 (%86,2)	5 (%9,8)	2 (%3,9)
	Erkek	10 (%58,8)	7 (%41,1)	
Yaş	Yenidoğan	22 (%66,6)	11 (%33,3)	
	1 ay-1 yaş	4 (%80)	1 (%20)	
	1-18 yaş	28 (%93,3)		2 (%6,6)
Bölge	Baş-boyun	3 (%100)		
	Torakal	1 (%100)		
	Gonadal	24 (%100)		
	Retroperitoneal		2 (%100)	
	Sakrokoksigeal	26 (%68,4)	10 (%26,3)	2 (%5,2)

Tablo 14: Yenidoğan döneminde opere edilmiş olan sakrokoksigeal teratomlu kaybedilen ve yaşayan olguların doğum ve kitle özelliklerine göre ortalama değerlerinin karşılaştırması

	Toplam n:29	Exitus n:5 (%17,2)	Yaşayan n:24 (%82,7)
Ortalama doğum haftası	36,3	33,1	37
Ortalama doğum kilosu	3740 gr	4400 gr	3603 gr
Ortalama kitle ağırlığı	1077 gr	2866 gr	706 gr
Ortalama kitle boyutları	10,4 x8,6x7,2 cm	15,4x13,3x12,1 cm	9,4x7,7x6,3 cm
Ortalama kitle volümü	662 ml	1780 ml	430 ml
Kan ürünü replasmanı	16 hasta	4 hasta	12 hasta

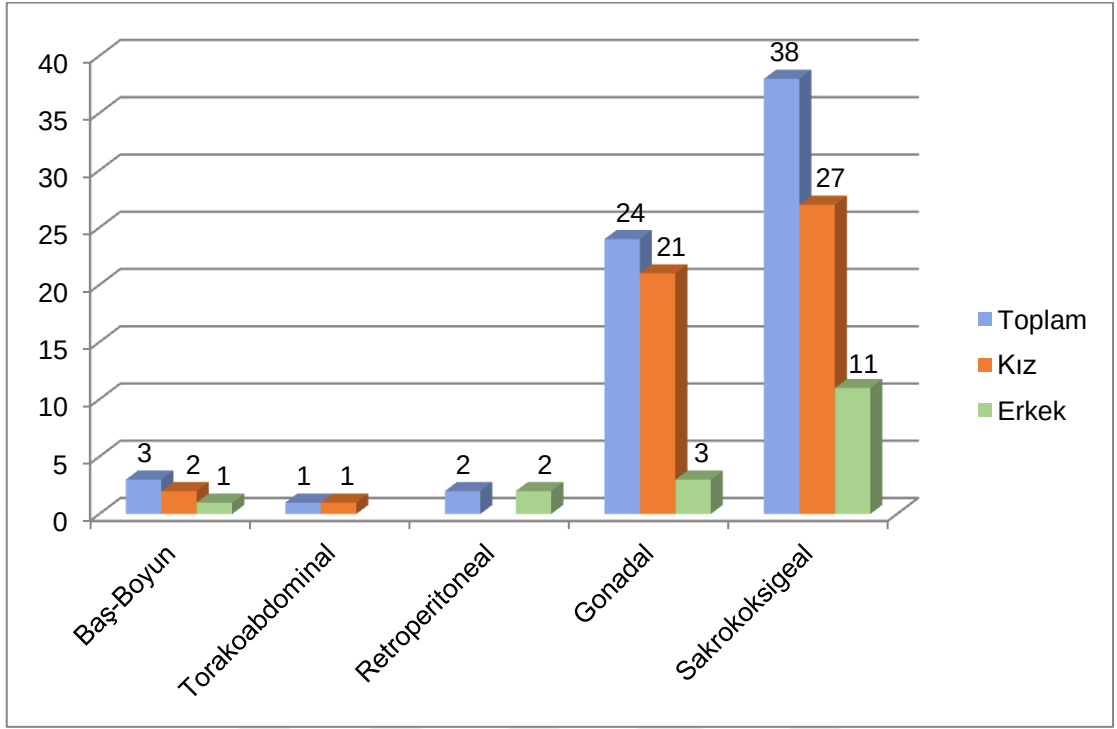
Tablo 15: Yenidoğan döneminde opere edilmiş olan sakrokoksigeal teratomlu olguların ortalama doğum haftası, doğum kilosu, kitle ağırlığı-volümü, kitle volümü/doğum ağırlığı ve kitle ağırlığı/doğum ağırlığı oranlarının mortalite ile ilişkisi

		<i>N</i>	<i>Ort±S.s</i>	<i>Min-Max (Medyan)</i>	<i>^ap</i>
Doğum Haftası	<i>Exitus</i>	5	33,16±4,17	28-39 (33)	0,036*
	<i>Yaşayan</i>	24	37,05±2,32	33-40 (37)	
Doğum Kilosu	<i>Exitus</i>	5	4400,0±2770,37	2500-9000 (3000)	0,656
	<i>Yaşayan</i>	24	3603,33±986,01	2030-6700 (3400)	
Kitle Volümü	<i>Exitus</i>	5	1780,8±1707,29	713-4445 (1121)	0,039*
	<i>Yaşayan</i>	24	430,0±611,57	6-2667 (150)	
Kitle Ağırlığı	<i>Exitus</i>	5	2866,2±2711,71	1100-7556 (1616)	0,005*
	<i>Yaşayan</i>	24	706,04±1050,52	10-4534 (284)	
Kitle Volümü/Doğum Ağırlığı	<i>Exitus</i>	5	0,37±0,09	0,28-0,493 (0,34)	0,002*
	<i>Yaşayan</i>	24	0,09±0,11	0,002-0,398 (0,04)	
Kitle Ağırlığı/Doğum Ağırlığı	<i>Exitus</i>	5	0,57±0,16	0,44-0,839 (0,54)	0,002*
	<i>Yaşayan</i>	24	0,15±0,18	0,003-0,676 (0,09)	

^aMann-Whitney U Testi **p*<0,05 ***p*<0,001

Tablo 16: Yenidoğan döneminde opere edilmiş olan sakrokoksigeal teratomlu olguların kan transfüzyonu ile mortalite ilişkisi

		Kan Transfüzyonu		^a p
		Yapılmadı	Yapıldı	
Yaşam Durumu	<i>Exitus</i>	1 (%20,0)	4 (%80,0)	0,261
	<i>Yaşayan</i>	12 (%50,0)	12 (%50,0)	
^a Fisher Exact Testi		*p<0,05	**p<0,01	



Grafik 1: Teratomların anatomik bölgelere ve cinsiyete göre dağılımları

7. KAYNAKÇA

1. Sharma D, Murki S, Pratap T. Sacrococcygeal Teratoma - An Interesting Case and Infrequently seen Extension in Spinal Cord. *J Neonatal Biol* 2017;6:2-3
2. Isaacs H. Germ Cell Tumors. *Clin Surg* 2017;2:1.
3. Cecchetto G. Gonadal germ cell tumors in children and adolescents. *J Indian Assoc Pediatr Surg* 2014;19(4):189-194.
4. Pierce JL, Frazier AL, Amatruda JF. Pediatric Germ Cell Tumors: A Developmental Perspective. *Adv Urol* 2018;8:1–8.
5. Zuquello RÁ, Tagliari G, Bagatini R, Camiña RH, Caron R et al. Immature teratoma presenting as a soft-tissue mass with no evidence of other sites of involvement: a case report. *Diagn Pathol* 2016;11:76-80.
6. Fazari AB, Musharaf KA, Ahmed B. Sacrococcygeal teratoma, case report. *GJHS* 2009;5(1):84-87.
7. Mortazavi N, Mahzooni P, Taheri D, Jalilian M, Novin K. Germ Cell Tumor's Survival Rate in Young Patients. *Iran J Cancer Prev* 2015;8(4):1-4.
8. Richardson BE, Lehmann R. Mechanisms guiding primordial germ cell migration: strategies from different organisms. *Nat Rev Mol Cell Biol* 2010;11(1):37–49.
9. Trabert SB, Wentzensen N, Cook MB, Rusner C, Oosterhuis JW et al. Gonadal and extragonadal germ cell tumors in the United States, 1973–2007. *Int J Androl* 2012;35(4):616–625.
10. Basmaci M, Hasturk AE, Pak I. Cystic mature teratoma of the thoracic region in a child: An unusual case. *J Neurosci Rural Pract* 2011;2(2):186–189.
11. Carney JA, Thompson DP, Johnson CL, Lynn HB. Teratomas in children: clinical and pathologic aspects. *J Pediatr Surg* 1972;7(3):271-282.
12. O'Donovan EJ, Thway K and Moskovic EC. Extragonadal teratomas of the adult abdomen and pelvis: a pictorial review. *Br J Radiol* 2014;87(1041):1-5.
13. Yoon HM, Byeon SJ, Hwang JY, Kim JR, Jung AY et al. Sacrococcygeal teratomas in newborns: a comprehensive review for the radiologists. *Acta Radiol* 2018;59(2):236-246.
14. Tapper D, Lack EE. Teratomas in Infancy and Childhood A 54-Year Experience at the Children's Hospital Medical Center. *Ann Surg* 1983;198(3):398–410.

15. Youssef A, Raafat T, Mahfouz Y, ELshafiey M, Refaat A et al. Spectrum of Teratoma: From Head to Toe, radiological pathological correlation. ECR 2014;C-1300.
16. Özyurt R, Yüksel MA, Temel İ, Abalı R, Boran AB. Germ Cell Ovarian Tumor Comprises of Yolk Sac Tumor, Embryonal Carcinoma and Immature Teratoma: A Case Report. Istanbul Med J 2010;11(4):185-189.
17. Vugrin D, Chen A, Feigl P, Laszlo J. Embryonal carcinoma of the testis. Cancer. 1988;61(11):2348-2352.
18. Rana S, Gill MK, Kalhan S, Satarkar RN, Sangwaiya A. Immature Teratoma with Embryonal Carcinoma; a Rare Malignant Mixed Germ Cell Tumor in a 13-Year-Old Girl. Iran J Pathol 2016;11(1):66–70.
19. Azizkhan RG, Haase GM, Applebaum H, Dillon PW, Coran AG et al. Diagnosis, management, and outcome of cervicofacial teratomas in neonates: a Childrens Cancer Group study. J Pediatr Surg 1995;30(2):312-316.
20. Celayir AC, Sander S, Eliçevik M, Ünal M. Posterior sagittal approach for presacral masses in infancy. Ped Surg Int 2002;18:208-210.
21. Kumar B, Sharma SB. Neonatal oral tumors: congenital epulis and epignathus. J Pediatr Surg 2008;43(9):e9-e11.
22. Cohen RA, Loarte P, Navarro V, Mirrer B. Mature Cardiac Teratoma in an Adult. Cardiol Res 2012;3(3):97–99.
23. Yalagachin GH. Anterior Mediastinal Teratoma- A Case Report with Review of Literature. Indian J Surg 2013;75(1):182–184.
24. No TH, Seol SH, Seo GW, Kim DI, Yang SY et al. Benign Mature Teratoma in Anterior Mediastinum. J Clin Med Res 2015;7(9):726–728.
25. Gatcombe HG, Assikis V, Kooby D et al. Primary retroperitoneal teratomas: a review of the literature. J Surg Oncol 2004;86:107–113.
26. Mathur P, Lopez-Viego MA, Howell M. Giant Primary Retroperitoneal Teratoma in an Adult: A Case Report. Case Rep Med 2010;1-3.
27. Nirmal TJ, Krishnamoorthy S, Korula A. Primary intrarenal teratoma in an adult: A case report and review of literature. Indian J Urol 2009;25(3):404–406.
28. Aldhilan A, Alenezi K, Alamer A, Aldhilan S, Alghofaily K. Retroperitoneal teratoma in 4 months old girl: Radiology and pathology correlation. Curr Pediatr Res 2013;17(2):133-136.

29. Karaman I, Erdoğan D, Özalevli S, Karaman A, Çavuşoğlu H et al. Fetus in fetu: A report of two cases. *J Indian Assoc Pediatr Surg* 2008;13(1):30–32.
30. Aihole JS, Babu MN, Jadhav V, Javaregowda D. Gastric Teratoma: An Unusual Presentation and Location. *Indian J Med Paediatr Oncol* 2017;38(4):563–565.
31. Saleem M, Mirza B, Talat N, Sharif M. Gastric teratoma: Our 17 year experience. *J Pediatr Surg* 2018;53(2):234–236.
32. Rescorla FJ, Sawin RS, Coran AG, Dillon PW, Azizkhan RG. Long-term outcome for infants and children with sacrococcygeal teratoma: a report from the Childrens Cancer Group. *J Pediatr Surg* 1998;33(2):171–176.
33. Stefanovic V, Halmesmäki E. Peripartum Ultrasound-Guided Drainage of Cystic Fetal Sacrococcygeal Teratoma for the Prevention of the Labor Dystocia: A Report of Two Cases. *AJP Rep* 2011;1(2):87–90.
34. Coşar E, Sezen D, Gökaslan H, Kavak ZN. Prenatal diagnosis of sacrococcygeal teratoma. *Marmara Medical Journal* 2003;16(1):52-54.
35. Shannon SA, Henningsen C. Sacrococcygeal Teratoma. *JDMS* 2004;20(5):351–354.
36. Jumbia T, Shahbalb S, Osawab F, Kambunic F, Mwikab P. Sacrococcygeal teratoma type IV presenting with urine retention in infants. *J Pediatr Surg Case Rep* 2018;39: 53–57.
37. Keene DJB, Craigie RJ, Shabani A, Batra G, Hennayake S. Bipartite Anterior Extraperitoneal Teratoma: Evidence for the Embryological Origins of Teratomas? *Case Rep Med* 2011:1-4.
38. Ashcraft KW, Holder TM. Hereditary presacral teratoma. *J Pediatr Surg* 1974;9(5):691–697.
39. Niramis R, Anuntkosol M, Buranakitjaroen V, Tongsin A, Mahatharadol V et al. Long-Term Outcomes of Sacrococcygeal Germ Cell Tumors in Infancy and Childhood. *Hindawi Publishing Corporation Surgery Research and Practice* Volume 2015;1-8.
40. Mondal K, Mandal R. Bilateral lung metastases unveils an asymptomatic sacrococcygeal yolk sac tumor. *Indian J Pathol Microbiol* 2017;60(4):565-567.
41. Gross SJ, Benzie RJ, Sermer M, Skidmore MB, Wilson SR. Sacrococcygeal teratoma: prenatal diagnosis and management. *Am J Obstet Gynecol.* 1987;156(2):393-396.
42. Cho JY, Lee YH. Fetal tumors: prenatal ultrasonographic findings and clinical characteristics. *Ultrasonography.* 2014;33(4):240-251.

43. Takeuchi J, Handa H, Oda Y, Uchida Y. Alpha-fetoprotein in intracranial malignant teratoma. *Surg Neurol* 1979;12(5):400-404.
44. Motawy MS, Szymendera JJ, al-Jazzaf H, Behbehani AE, Foudeh MO et al. Serum AFP, hCG and CEA in the management of patients with testicular, ovarian and extragonadal germ cell tumors. *Int J Biol Markers* 1992;7(2):80-86.
45. Kremer MEB, Althof JF, Derikx JPM, van Baren R, Heij HA et al. The incidence of associated abnormalities in patients with sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 2018;53(10):1918-1922.
46. Sahinoglu Z, Celayir AC, Ozcan N, Asoglu MR. Late prenatal diagnosis of type IV sacrococcygeal teratoma associated with urogenital sinus: Difficulties in the prenatal differential diagnosis. *J Neonat Surg*, 2013;2(1):11-14.
47. Sahinoglu Z, Celayir AC, Ertekin AA, Gucluer B. The Prenatal Diagnosis of A Huge Facial Tumour: Report of a Rare Case and Literature Review" *Congenital Anomalies*. *Congenital anomalies* 2012;52(2):111-114.
48. Sarsu SB, Parmaksiz ME, Cabalar E, Karapur A, Kaya C. A Very Rare Cause of Anal Atresia: Currarino Syndrome. *J Clin Med Res*. 2016;8(5):420–423.
49. Flake AW. Fetal sacrococcygeal teratoma. *Semin Pediatr Surg* 1993;2(2):113-120.
50. Tuladhar R, Patole SK, Whitehall JS. Sacrococcygeal teratoma in the perinatal period, *Postgrad Med J* 2000;76:754–759.
51. Vana PG, Yong S, Hayden D, Saclarides T, Slogoff M et al. Recurrent Retrorectal Teratoma. *Case Rep Med*. 2014;1-3.
52. Savitri QM, Prihartono S, Harahap A. Giant sacrococcygeal teratoma in newborn: A rare case. *J Pediatr Surg Case Rep* 2019;54:47-50.
53. Pauniah SL, Tatti O, Lahdenne P, Lindahl H, Pakarinen M et al. Tumor markers AFP, CA 125, and CA 19-9 in the long-term follow-up of sacrococcygeal teratomas in infancy and childhood. *Tumour Biol* 2010;31(4):261-265.
54. Wang Y, Wu Y, Wang L, Yuan X, Jiang M et al. Analysis of Recurrent Sacrococcygeal Teratoma in Children: Clinical Features, Relapse Risks, and Anorectal Functional Sequelae. *Med Sci Monit* 2017;23:17–23.
55. Rios LTM, Júnior EA, Nardozza LMM, Moron AF Martins MG. Prenatal Diagnosis of Sacrococcygeal Teratoma Using Two and Three-Dimensional Ultrasonography. *Case Rep Obstet Gynecol*. 2012;1-4.

56. Comiter CV, Kibel AS, Richie JP, Nucci MR, Renshaw AA. Prognostic features of teratomas with malignant transformation: a clinicopathological study of 21 cases. *J Urol* 1998;159(3):859-863.
57. Sinha S, Sarin YK, Deshpande VP. Neonatal Sacrococcygeal Teratoma: Our Experience with 10 Cases. *J Neonat Surg* 2013;2(1):2-7.
58. Terenziani M, D'Angelo P, Inserra A, Boldrini R, Bisogno G, et al. Mature and Immature Teratoma: A Report From the Second Italian Pediatric Study. *Pediatr Blood Cancer* 2015;62(7):1202-1208.
59. Szylo K, Lesnik N. Sacrococcygeal teratoma – case report and review of the literature. *Am J Case Rep* 2013;14:1–5.
60. Kremer MEB, Althof JF, Derikx JPM, van Baren R, Heij HA et al. The incidence of associated abnormalities in patients with sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 2018;53(10):1918-1922.
61. Barksdale EM, Obokhare I. Teratomas in infants and children. *Current Opinion in Pediatrics* 2009;21(3):344–349.
62. Ross JH, Kay R. Prepubertal Testis Tumors. *Rev Urol* 2004;6(1):11-18.
63. Brodsky JR, Irace AL, Didas A, Watters K, Estroff JA et al. Teratoma of the neonatal head and neck: A 41-year experience. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2017;97:66-71.
64. Hassan HS, Elbatarny AM. Sacrococcygeal teratoma: management and outcomes. *Ann Pediatr Surg* 2014;10:72-77.
65. Varma AV, Malpani G, Agrawal P, Malukani K, Dosi S. Clinicopathological spectrum of teratomas: An 8-year retrospective study from a tertiary care institute. *Indian J Cancer* 2017;54(3):576-579.
66. Desouki MM, Fadare O, Chamberlain BK, Shakir N, Kanbour-Shakir A. Malignancy associated with ovarian teratomas: frequency, histotypes, and diagnostic accuracy of intraoperative consultation. *Ann Diagn Pathol* 2015;19:103-106.
67. Sahin H, Abdullazade S, Sancı M. Mature cystic teratoma of the ovary: a cutting edge overview on imaging features. *Insights Imaging* 2017;8(2):227–241.
68. Acién P, Acién M, Ruiz-Maciá E, Martín-Estefanía C. Ovarian teratoma-associated anti-NMDAR encephalitis: a systematic review of reported cases. *Orphanet J Rare Dis* 2014;9:1-9.
69. Ismail SR. An Evaluation of the Incidence of Right-Sided Ovarian Cystic Teratoma Visualized on Sonograms. *JDMS* 2005;21:336–342.

70. Dieckmann KP, Richter-Simonsen H, Kulejewski M, Ikogho R, Zecha H et al. Testicular Germ-Cell Tumours: A Descriptive Analysis of Clinical Characteristics at First Presentation. *Urol Int* 2018;100(4):409–419.
71. Marina NM, Cushing B, Giller R et al. Complete surgical excision is effective treatment for children with immature teratomas with or without malignant elements: a Pediatric Oncology Group/Children's Cancer Group Intergroup Study. *J Clin Oncol* 1999;17(7):2137-2143.
72. Yao W, Li K, Zheng S et al. Analysis of recurrence risks for sacrococcygeal teratoma in children. *J Pediatr Surg* 2014;49:1839–1842.
73. Gitlin D, Perricelli A, Gitlin GM. Synthesis of alphafetoprotein by liver, yolk sac, and gastrointestinal tract of the human conceptus. *Cancer Res* 1972;32:979–982.
74. Billmire DF, Grosfeld JL. Teratomas in childhood: analysis of 142 cases. *J Pediatr Surg* 1986;21(6):548-551.
75. Çiğdem MK, Önen A, Otçu S, Okur H, Akay H. Sakrokoksigeal teratomalara yaklaşım. *Çocuk Cerrahisi Dergisi* 2007;21(2):108-112.
76. Brewer JA, Tank ES. Yolk sac tumor and alphafetoprotein in first year of life. *Urology* 1993;42:79–80.
77. Barreto MW, Silva LV, Barini R, Oliveira-Filho AG, Sbragia L. Alphafetoprotein following neonatal resection of sacrococcygeal teratoma. *Pediatr Hematol Oncol* 2006;23:287–291.
78. Dharmarajana H, Bazinet NR, Chandya BM. Mature and immature pediatric head and neck teratomas: A 15-year review at a large tertiary center *Int J Ped Otorhinolaryngol* 2018;105:43–47.
79. Ruoslahti E, Engvall E, Pekkala A et al. Developmental changes in carbohydrate moiety of human alpha-fetoprotein. *Int J Cancer* 1978;22:515–520.
80. Peiro JL, Sbragia L, Scorletti, Lim FY, Shaaban A. Management of fetal teratomas, *Pediatr Surg Int* 2016;32:635–647.
81. Outwater EK, Siegelman ES, Hunt JL. Ovarian Teratomas: Tumor Types and Imaging Characteristics. *RadioGraphics* 2001;21:475–490.
82. Moreno CC, Small WC, Camacho JC, Master V, Kokabi N et al. Testicular Tumors: What Radiologists Need to Know—Differential Diagnosis, Staging, and Management. *RadioGraphics* 2015;35:400–415.

83. Kurt S, Avşar HA, Doğan ÖE, Saatli HB, Saygılı U. Effects of mature cystic teratoma on reproductive health and malignant transformation: A retrospective analysis of 80 cases. *J Turk Ger Gynecol Assoc* 2019;20(2):84–88.
84. Keske M, Canda AE, Yalcin S, Kilicarslan A, Kibar Y et al. Is testis-sparing surgery safe in small testicular masses? Results of a multicentre study. *Can Urol Assoc J* 2017;11(3-4):E100–E104.
85. Chabaud-Williamson M, Netchine I, Fasola S, Larroquet M, Lenoir M et al. Ovarian-sparing surgery for ovarian teratoma in children. *Pediatr Blood Cancer* 2011;57(3):429-434.
86. Fırat P, Mocan G, Usubütün A, Özdamar Ş, Küçükali T et al. Germ Cell Neoplasms of the Ovaries: Diagnostic Accuracy of Intraoperative Consultation. *Patoloji Bülteni* 2000;17(3):155-158.
87. Łuczak J and Bağlaj M. Ovarian teratoma in children: a plea for collaborative clinical study. *J Ovarian Res* 2018;11:1-8.
88. Trotman GE, Cheung H, Tefera EA, Darolia R, Gomez-Lobo V. Rate of Oophorectomy for Benign Indications in a Children's Hospital: Influence of a Gynecologist. *J Pediatr Adolesc Gynecol* 2017;30(2):234-238.
89. Wessell A, Hersh DS, Ho CY, Lumpkins KM, Groves MLA. Surgical treatment of a type IV cystic sacrococcygeal teratoma with intraspinal extension utilizing a posterior-anterior-posterior approach: a case report. *Childs Nerv Syst* 2018;34(5):977–982.
90. Hendren WH, Henderson BM. The surgical management of sacrococcygeal teratomas with intrapelvic extension. *Ann Surg* 1970;171:77–84.
91. AbouZeid AA, Mohamed MH, Dahab MM, GadAllah MA, Zaki AM. Sacrococcygeal teratoma excision: a vertical rather than transverse wound closure. *Ann Pediatr Surg* 2017;13:207–212.
92. Philip R, Exelby MD. Sacrococcygeal Teratomas in Children. *Cancer journal for clinicians* 1972;22(4):202-208.
93. Huddart SN, Mann JR, Robinson K et al, Sacrococcygeal teratomas: the UK Children's Cancer Study Group's experience. *Pediatr Surg International* 2003;19(1-2):47–51.
94. Uchiyama M, Iwafuchi M, Naitoh M, Yagi M, Iinuma Y et al. Sacrococcygeal Teratoma: A Series of 19 Cases with Long-Term Follow-Up. *Eur J Pediatr Surg* 1999;9(03):158–162.

95. Barakat MI, Abdelaal SM, Saleh AM. Sacrococcygeal teratoma in infants and children. *Acta Neurochir (Wien)*. 2011;153(9):1781-1786.
96. Wakhlu A, Misra S, Tandon RK, Wakhlu AK. Sacrococcygeal teratoma. *Pediatr Surg Int* 2002;18(5-6):384-387.
97. Coleman A, Kline-Fath B, Keswani S, Lim FYJ. Prenatal solid tumor volume index: novel prenatal predictor of adverse outcome in sacrococcygeal teratoma. *Surg Res* 2013;184(1):330-336.
98. Rodriguez MA, Cass DL, Lazar DA, Cassady CI, Moise KJJ et al. Tumor volume to fetal weight ratio as an early prognostic classification for fetal sacrococcygeal teratoma. *Pediatr Surg* 2011;46(6):1182-1185.
99. Gebb JS, Khalek N, Qamar H, Ozcan T, Johnson MP et al. 178: Tumor volume to fetal weight ratio > 0.12 is associated with worse perinatal outcomes in fetuses with sacrococcygeal teratoma. *AJOG* 2017;216(1): S118.
100. Den Otter SCM, de Mol AC, Eggink AJ, van Heijst AFJ, de Bruijn D et al. Major Sacrococcygeal Teratoma in an Extreme Premature Infant: A Multidisciplinary Approach. *Fetal Diagn Ther* 2008;23(1):41–45.
101. Isserman RS, Nelson O, Tran KM, Cai L, Polansky M et al. Risk factors for perioperative mortality and transfusion in sacrococcygeal teratoma resections. *Paediatr Anaesth* 2017;27(7):726-732.
102. Kremer ME, Wellens LM, Derikx JP, van Baren R, Heij HA et al. Hemorrhage is the most common cause of neonatal mortality in patients with sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 2016;51(11):1826-1829.
103. Partridge EA, Canning D, Long C, Peranteau WH, Hedrick HL et al. Urologic and anorectal complications of sacrococcygeal teratomas: prenatal and postnatal predictors. *J Pediatr Surg* 2014;49(1):139-143.
104. Aubin A, Pondaven S, Bakhos D, Lardy H, Robier A et al. Oropharyngeal teratomas in newborns: Management and outcome. *Eur Ann Otorhinolaryngol, Head and Neck Dis* 2014;131(5):271-275.
105. Bond SJ, Harrison MR, Schmidt KG, Silverman NH, Flake AW et al. Death due to high-output cardiac failure in fetal sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 1990;25(12):1287-1291.
106. Sathyanarayana KV, Reddy PS. Teratomas in children:an institutional retrospective study. *Asian Pac. J. Health Sci.*, 2016;3(3):18-23

107. Alexander VRC, Manjaly JG, Pepper CM, Ifeacho SN, Hewitt RJ et al. Head and neck teratomas in children--A series of 23 cases at Great Ormond Street Hospital. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2015;79(12):2008-2014.
108. Martino F, Avila LF, Encinas JL, Luis AL, Olivares P et al. Teratomas of the neck and mediastinum in children. *Pediatr Surg Int* 2006;22:627–634.
109. Chirdan LB, Uba AF, Pam SD, Edino ST, Mandong BM et al. Sacrococcygeal teratoma: Clinical characteristics and long-term outcome in Nigerian children. *Ann Afr Med* 2009;8(2):105-109.

