

Онкоцитарная адренокортикальная опухоль надпочечника (клинический случай)

М.Х. Гебенев¹, З.М. Ахохов²

¹ГБУЗ Ставропольского края «Ставропольский краевой клинический онкологический диспансер»; Россия, 355047 Ставрополь, ул. Октябрьская 182а;

²кафедра урологии и репродуктивного здоровья человека (с курсом детской урологии-андрологии) ФГБОУ ВО «Ростовский государственный медицинский университет» Минздрава России; Россия, 344022 Ростов-на-Дону, Нахичеванский переулок, 29

Контакты: Залимхан Муаедович Ахохов zalimkhan@bk.ru

Описан клинический случай лечения пациента 32 лет с адренокортикальной опухолью правого надпочечника. При обращении в клинику пациент предъявлял жалобы на умеренные боли в правой поясничной области, общее состояние оценивалось как удовлетворительное. Пациент нормостенического телосложения, без вредных привычек. Предоперационные общие и биохимические показатели крови, включая уровни адренокортикотропного гормона, кортизола, альдостерона, прямого ренина, метанефрина, норметанефрина, в пределах нормальных значений. Пациенту была выполнена лапароскопическая латеральная трансперитонеальная адреналэктомия справа в положении на левом боку с использованием 4 троакаров. Больной выписан из стационара в удовлетворительном состоянии на 3-и сутки после оперативного лечения.

Ключевые слова: надпочечник, онкоцитомы, онкоцитарная адренокортикальная опухоль надпочечника, лапароскопическая адреналэктомия

Для цитирования: Гебенев М.Х., Ахохов З.М. Онкоцитарная адренокортикальная опухоль надпочечника (клинический случай). Онкоурология 2021;17(3):149–53. DOI: 10.17650/1726-9776-2021-17-3-149-153.

Oncocytic adrenocortic tumor of the adrenal (clinical case)

M.Kh. Gebenov¹, Z.M. Akhokhov²

¹Stavropol Regional Clinical Oncological Dispensary; 182a Oktyabrskaya St., Stavropol 355047, Russia;

²Department of Urology and Human Reproductive Health (with the course of pediatric urology-andrology), Rostov State Medical University, Ministry of Health of Russia; 29 Nakhichevanskiy Pereulok, Rostov-on-Don 344022, Russia

Contacts: Zalimkhan Muaedovich Akhokhov zalimkhan@bk.ru

A clinical case of treatment of a 32-year-old patient with an adrenocortical tumor of the right adrenal gland is described. When applying to the clinic, the patient was complaining about moderate pain in the right lumbar region, the general condition of the patient was estimated as satisfactory. The patient was of normosthenic constitution, had no bad habits, preoperative general and biochemical blood counts, including the levels of adrenocorticotrophic hormone, cortisol, aldosterone, direct renin, metanephrine, normetanephrine were within normal parameters. The patient underwent laparoscopic lateral transperitoneal adrenalectomy on the right in the position on the left side using 4 trocars. The condition of the patient was satisfactory, he was released from the hospital on the 3rd day after surgery.

Key words: adrenal gland, oncocytoma, oncocytic adrenocortical adrenal tumor, laparoscopic adrenalectomy

For citation: Gebenov M.Kh., Akhokhov Z.M. Oncocytic adrenocortic tumor of the adrenal (clinical case). Onkourologiya = Cancer Urology 2021;17(3):149–53. (In Russ.). DOI: 10.17650/1726-9776-2021-17-3-149-153.

Введение

Онкоцитарные новообразования, или онкоцитомы, — опухоли, состоящие в основном из онкоцитарных клеток. Онкоцитарные клетки впервые были описаны Н. Hamperl в 1931 г. как большие высокоэозинофильные

гранулярные клетки с пикнотическим ядром, обычно связанные с опухолью из клеток Хертла щитовидной железы [1]. Это эпителиальные клетки с ацидофильной гранулярной цитоплазмой и большим содержанием митохондрий. Онкоцитарные опухоли могут возникать

в различных органах, чаще всего в почках, щитовидной железе, гипофизе, слюнной железе, паращитовидных и слезных железах, а также в дыхательных путях и желудочно-кишечном тракте.

Онкоцитарная адренкортикальная опухоль надпочечника (ОАОН) – чрезвычайно редкое заболевание, впервые описанное S. Kakimoto и соавт. в 1986 г, с этого времени опубликовано всего 162 случая данной патологии [2, 3]. Установлено, что ОАОН – в основном нефункциональные и в большинстве случаев доброкачественные опухоли. ОАОН классифицируют на онкоцитому, онкоцитарное новообразование с неопределенным злокачественным потенциалом и онкоцитарную карциному [4]. Принято считать, что размер опухоли является клиническим признаком доброкачественного или злокачественного генеза онкоцитом: диаметр <4–5 см соответствует доброкачественной опухоли. Тем не менее анализ существующей литературы по данному вопросу позволяет считать, что при ОАОН размер, масса не являются прямыми признаками злокачественности образований надпочечника [5].

Лечение больных с опухолями надпочечника остается сегодня одним из самых сложных разделов эндокринной хирургии и онкологии. Отсутствие специфических симптомов, молекулярно-биологических маркеров, сложности трактовки с помощью лучевых методов диагностики, а также послеоперационной морфологической верификации удаленной опухоли затрудняют своевременную и правильную диагностику ОАОН [6].

Ведущим методом лечения больных с ОАОН остается хирургический [7]. Адреналэктомия считается предпочтительным оперативным методом и может быть выполнена посредством лапаротомии, комбинированного торакоабдоминального доступа, ретроперитонеального доступа, лапароскопии или робот-ассистированной хирургии [8]. Открытая хирургия была традиционным подходом к лечению опухолей надпочечников, однако с развитием эндоскопических методов стандартом хирургического лечения пациентов с малыми размерами опухолей (<60 мм) стала лапароскопическая адреналэктомия. Первая успешная адреналэктомия лапароскопическим доступом была выполнена в 1991 г. канадским хирургом M. Gagner [9]. Надпочечники анатомически расположены в верхнем отделе брюшинного пространства, краниально и медиально от почек, в непосредственной близости от диафрагмы, что позволяет использовать различные доступы к ним, включая латеральный трансперитонеальный, передний трансперитонеальный, латеральный брюшинный, задний брюшинный и даже трансторакальный. Лапароскопическая адреналэктомия имеет преимущества, такие как меньший объем кровопотери, меньшая вероятность кишечной непроходимости, умеренная послеоперационная боль, более быстрое восстановление больного, меньшее время пребывания

в стационаре, а также лучший косметический эффект [10–12]. Тем не менее для опухолей размером >60 мм и/или потенциально злокачественных опухолей ввиду возможных интра- и послеоперационных осложнений лапароскопическая адреналэктомия, по мнению некоторых авторов, остается спорной [13–15].

Латеральный трансперитонеальный доступ – наиболее часто используемый метод при лапароскопической адреналэктомии [16]. По мнению многих авторов, трансперитонеальная лапароскопическая адреналэктомия имеет очевидные преимущества, так как хирурги, осуществляющие лапароскопический доступ к надпочечникам, как правило, уже имеют навык лапароскопической идентификации, осмотра, операций на внутрибрюшинных органах и органах брюшинного пространства. Поэтому расширение операционного поля в сторону надпочечников не вызывает затруднений. При этом важно помнить, что имеет место паранеопластическая неоваскуляризация, которая дополнительно увеличивает вариабельность анатомии сосудов [17].

На сегодняшний день наиболее распространенная панель по критериям световой спектрометрии Weiss позволяет оценить степень злокачественности адренкортикальных новообразований и включает оценку 9 морфологических параметров: высокий ядерный индекс, митотический индекс более 5 % в 500 полях зрения, атипичные митозы, более 75 % эозинофильных клеток в опухоли, неструктурированность более 1/3 опухоли, некрозы, опухолевая венозная инвазия, опухолевая синусоидальная инвазия, инвазия в капсулу. Наличие 3 и более параметров указывает на злокачественность. Однако для онкоцитом критерии Weiss имеют свои ограничения [18, 19]. Если принимать во внимание тот факт, что онкоцитарные новообразования состоят из клеток с эозинофильной цитоплазмой, высоким ядерным полиморфизмом и почти всегда с диффузным характером роста, применение критериев Weiss для онкоцитом может привести к ошибочному диагнозу адренкортикального рака, что противоречит их более частому доброкачественному биологическому поведению. Поэтому В. Lin и соавт., М. Bisceglia и соавт. под руководством L. Weiss предложили модифицировать критерии Weiss для онкоцитом. По этой системе, если опухоль характеризуется хотя бы одним большим критерием (высокая митотическая активность, атипичные митозы или венозная инвазия), она злокачественная; если опухоль имеет малые критерии (большой размер, некроз или синусоидальное вторжение), она считается опухолью с неопределенным злокачественным потенциалом; если отсутствуют все большие и малые критерии, опухоль доброкачественная [20, 21].

Клинический случай

Пациент, 32 лет, в феврале 2019 г. был госпитализирован в хирургическое отделение №4 Ставропольского краевого клинического онкологического диспансера с жалобами



Рис. 1. Мультиспиральная компьютерная томография забрюшинного пространства с внутривенным контрастным болюсным усилением: а – аксиальная проекция; б – сагиттальная проекция; в – объемный рендеринг (1 – онкоцитарная адренкортикальная опухоль надпочечника; 2 – печень; 3 – правая почка)

Fig. 1. Contrast-enhanced multislice computed tomography images of the retroperitoneal space: а – axial view; б – sagittal view; в – volumetric rendering (1 – oncocytic adrenocortical tumor of the adrenal gland; 2 – liver; 3 – right kidney)

на умеренные боли в правой поясничной области. Симптомы беспокоили в течение последних 2 лет, за это время пациент за медицинской помощью не обращался, лечения не получал.

Пациент нормостенического телосложения, без вредных привычек, с неотягощенным коморбидным статусом, семейный онкологический анамнез без особенностей, без признаков эндокринопатии. Предоперационные лабораторные общие и биохимические показатели крови, включая уровни адренкортикотропного гормона, кортизола, альдостерона, прямого ренина, метанефрина, норметанефрина, были в пределах нормальных значений.

По данным мультиспиральной компьютерной томографии (МСКТ) органов забрюшинного пространства с внутривенным контрастным болюсным усилением (Ультравист 300) на границе исследования в проекции правого надпочечника было выявлено неоднородное образование размером $87,0 \times 78,3 \times 69,9$ мм, интимно прилежащее к правой доле печени, правой почке и нижней полой вене, накапливающее контрастное вещество (рис. 1).

По результатам клиничко-лабораторных данных опухоль была принята за гормоннепродуцирующее образование. По результатам МСКТ органов грудной клетки в легких объемного процесса не выявлено. При МСКТ органов брюшной полости с внутривенным контрастным болюсным усилением (Ультравист 300) обнаружены 2 гиподенсивные структуры в печени (кисты) размерами 4 и 5 мм, не накапливающие контрастное вещество.

Биопсию образования не выполняли ввиду большого размера. На основании данных лучевых методов диагностики, а именно отсутствия инвазии в печень, почку, окружающие кровеносные сосуды, поражения лимфатических узлов или других висцеральных поражений, было принято решение о выполнении операции лапароскопическим доступом.

Пациенту 11.02.2020 была проведена лапароскопическая латеральная трансперитонеальная адреналэктомия справа в положении на левом боку с использованием 4 троакаров (рис. 2).

Макроскопически – солидная опухоль размером $85 \times 80 \times 75$ мм, массой 400 г (рис. 3).

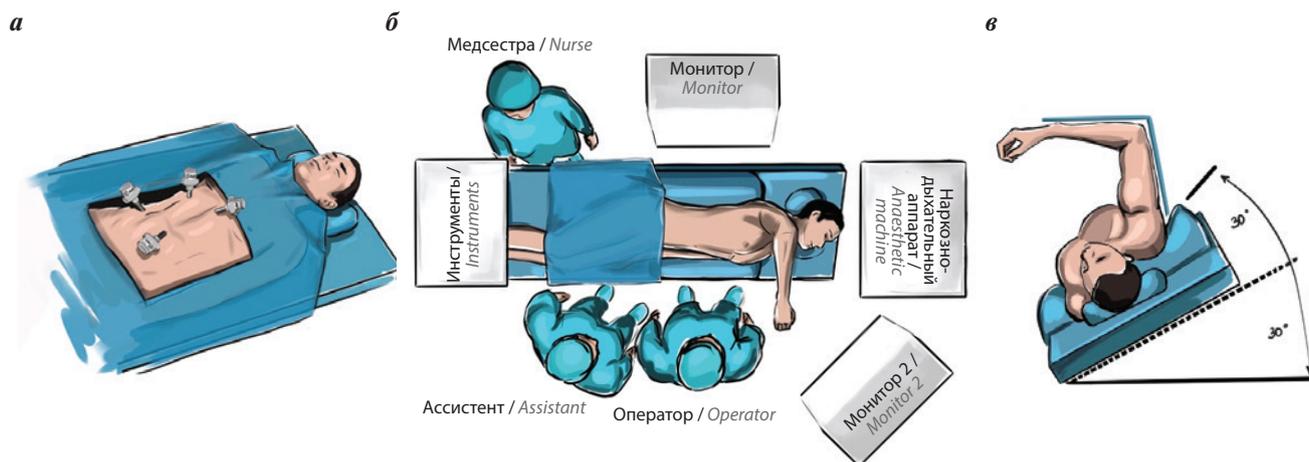


Рис. 2. Лапароскопическая латеральная трансперитонеальная адреналэктомия справа (рисунок): а – расположение портов; б – компоновка операционной бригады; в – угол наклона влево операционного стола

Fig. 2. Right-sided laparoscopic lateral transperitoneal adrenalectomy (figure): а – location of the ports; б – arrangement of the surgical team; в – angle of operating table tilt

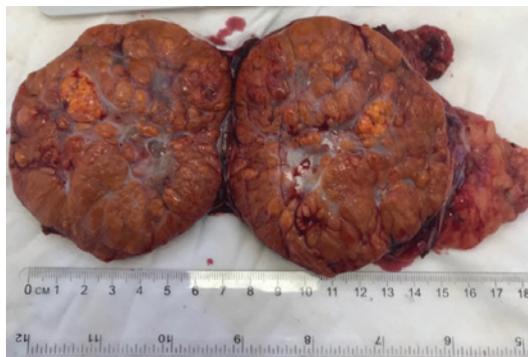


Рис. 3. Макропрепарат в разрезе: онкоцитарная аденокортикальная опухоль надпочечника
Fig. 3. Dissected gross specimen: oncocytic adrenocortical tumor of the adrenal gland

Интраоперационно кровотечения или других осложнений не зафиксировано, пациент оставался гемодинамически стабильным на протяжении всей операции. Страховой дренаж справа удален на 1-е сутки. Пациент в удовлетворительном состоянии выписан из стационара на 3-и сутки после хирургического лечения.

Морфологическая верификация. Микроскопически отмечались фрагменты ткани надпочечника с разрастанием эпителиоидноклеточной опухоли солидного строения, состоящей из крупных полигональных клеток с интенсивной эозинофильной цитоплазмой и округлыми ядрами с хорошо просматриваемыми ядрышками. Сформирована фиброзная капсула узла. Очагов некроза и ангиолимфатической инвазии не обнаружено. При подсчете митотической активности опухоли (на 50 полей зрения) фигуры митоза не выявлены, поэтому морфологическая картина опухоли соответствует онкоцитоме надпочечника (рис. 4).

Наблюдение. В послеоперационном периоде через 6 и 12 мес в контрольных биохимических анализах крови показатели (уровни аденокортикотропного гормона, кортизола, альдостерона, прямого ренина, метанефрина, норметанефрина) находились в пределах нормы. Также пациенту выполнена компьютерная томография органов брюшинного пространства с внутривенным контрастным болюсным усилением,

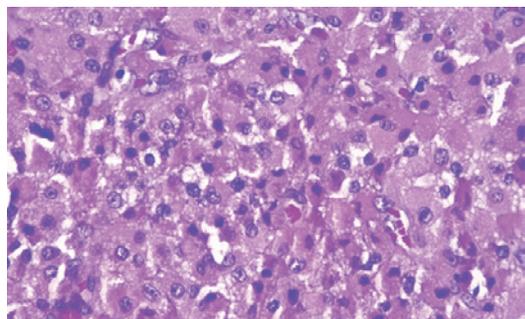


Рис. 4. Микропрепарат: крупные полигональные клетки с интенсивной эозинофильной цитоплазмой, округлыми ядрами и хорошо просматриваемыми ядрышками ($\times 200$)
Fig. 4. Gross specimen: large polygonal cells with intense eosinophilic cytoplasm, round nuclei, and well-distinguished nucleoli ($\times 200$)

по результатам которой данных о наличии рецидива заболевания не получено.

Обсуждение

Онкоцитарная аденокортикальная опухоль надпочечника — чрезвычайно редкое заболевание. На сегодняшний день нет выявленных экологических и генетических рисков, связанных с ОАОН. Большинство описанных в литературе случаев ОАОН — гормоннепродуцирующие образования, лишь 17 % опухолей являются функциональными [22]. Диагноз ОАОН должен основываться на данных гистологических, иммуногистохимических исследований согласно системе Lin–Weiss–Bisceglia [20, 21]. Преимущество лапароскопического доступа к надпочечникам с точки зрения кровопотери, длительности операции, вероятности кишечной непроходимости, периода восстановления пациента, послеоперационной боли, косметического эффекта перед открытой операцией неоспоримо. Лапароскопическая адреналэктомия может выполняться не только при доброкачественных, но и злокачественных поражениях надпочечника [12, 23]. Наши результаты показывают, что лапароскопическая адреналэктомия является эффективным хирургическим методом и может безопасно выполняться пациентам с образованиями надпочечника размером >60 мм.

Как было упомянуто ранее, существуют и другие подходы к надпочечникам. Ретроперитонеоскопический доступ может применяться при ранее перенесенных внутрибрюшинных операциях и возможном спаечном процессе, а также пациентам с повышенным индексом массы тела. Важно помнить, что при ретроперитонеоскопическом доступе имеет место возможное поражение брюшины, что на раннем этапе обучения увеличивает сложность процедуры, однако в центрах с большим опытом ретроперитонеоскопической и трансперитонеальной техники это осложнение не является значимым.

Заключение

Основным методом лечения онкоцитарных аденокортикальных опухолей надпочечника остается хирургический. Данные новообразования могут диагностироваться на поздних стадиях ввиду отсутствия специфических симптомов, молекулярно-биологических маркеров, что делает необходимым более углубленное изучение молекулярно-биологических механизмов этих опухолей. Лапароскопическая трансперитонеальная латеральная адреналэктомия — безопасный и эффективный метод удаления доброкачественных и злокачественных опухолей надпочечников. Она имеет преимущества по сравнению с лапаротомией ввиду меньшего объема кровопотери, меньшей вероятности кишечной непроходимости, умеренной послеоперационной боли, более быстрого восстановления больного, меньшего времени пребывания в стационаре, а также лучшего косметического эффекта.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- Hamperl H. Beitrage zur normalen und pathologischen Histologie menschlicher Speicheldrusen. *Z Mikrosk Anat Forsch* 1931;27:1–55.
- Kakimoto S., Yushita Y., Sanefuji T. et al. Non-hormonal adrenocortical adenoma with oncocytoma-like appearances. *Hinyokika Kyo* 1986;32(5):757–63.
- Corrales J.J., Robles-Lázaro C., Sánchez-Marcos A.I. et al. Plurihormonal cosecretion by a case of adrenocortical oncocytic neoplasm. *Case Rep Endocrinol* 2016;2016:6785925.
- Baloch Z.W., LiVolsi V.A. Oncocytic lesions of the neuroendocrine system *Semin Diagn Pathol* 1999;16(2):190–9.
- Albano D., Agnello F., Midiri F. et al. Imaging features of adrenal masses. *Insights Imaging* 2019;10(1):1. DOI: 10.1186/s13244-019-0688-8.
- Ромашенко П.Н., Майстренко Н.А., Орлова Р.В., Бабич А.И. Результаты диагностики и лечения аденокортикального рака. *Вестник хирургии им. И.И. Грекова* 2015;174(3):29–39. [Romashchenko P.N., Maystrenko N.A., Orlova R.V., Babich A.I. Results of diagnostics and treatment of adrenocortical cancer. *Vestnik hirurgii im. I.I. Grekova = Grekov's Bulletin of Surgery* 2015;174(3):29–39. (In Russ.)].
- Воронкова И.А., Гуревич Л.Е., Бритвин Т.А. и др. Экспрессия рецепторов соматостатина в аденокортикальных карциномах. *Проблемы эндокринологии* 2018;64(2):72–8. [Voronkova I.A., Gurevich L.E., Britvin T.A. et al. Somatostatin receptor expression in adrenocortical carcinomas. *Problemy endokrinologii = Problems of Endocrinology* 2018;64(2):72–8. (In Russ.)]. DOI: 10.14341/prob19319.
- Stefanidis D., Goldfarb M., Kercher K.W. et al. SAGES guidelines for minimally invasive treatment of adrenal pathology. *Surg Endosc* 2013;27(11):3960–80. DOI: 10.1007/s00464-013-3169-z.
- Gagner M., Lacroix A., Prinz R.A. et al. Early experience with laparoscopic approach for adrenalectomy. *Surgery* 1993;114(6):1120–4; discussion 1124–5.
- Del Pizzo J.J. Transabdominal laparoscopic adrenalectomy. *Curr Urol Rep* 2003;4(1):81–6. DOI: 10.1007/s11934-003-0064-5.
- Gill I.S., Meraney A.M., Thomas J.C. et al. Thoracoscopic transdiaphragmatic adrenalectomy: the initial experience. *J Urol* 2001;165(6 Pt 1):1875–81.
- Moinzadeh A., Gill I.S. Laparoscopic radical adrenalectomy for malignancy in 31 patients. *J Urol* 2005;173(2):519–25. DOI: 10.1097/01.ju.0000149038.89467.30.
- Lupaşcu C., Târcoveanu E., Bradea C. et al. Laparoscopic adrenalectomy for large solid cortical tumours – is it appropriate? *Chirurgia (Bucur)* 2011;106(3):315–20.
- Machado N.O., Al Qadhi H., Al Wahaibi K., Rizvi S.G. Laparoscopic adrenalectomy for large adrenocortical carcinoma. *JSLs*. 2015;19(3):e2015.00036. DOI: 10.4293/JSLs.2015.00036.
- Mesci A., Celik O., Akand M. et al. Evaluation of laparoscopic transperitoneal adrenalectomy: is it feasible for large masses? *Minerva Urol Nefrol* 2015;67(3):175–8.
- Assalia A., Gagner M. Laparoscopic adrenalectomy. *Br J Surg* 2004;91(10):1259–74. DOI: 10.1002/bjs.4738.
- Suzuki K., Ushiyama T., Ihara H. et al. Complications of laparoscopic adrenalectomy in 75 patients treated by the same surgeon. *Eur Urol* 1999;36(1):40–7. DOI: 10.1159/000019925.
- Weiss L.M. Comparative histologic study of 43 metastasizing and nonmetastasizing adrenocortical tumors. *Am J Surg Pathol* 1984;8(3):163–9. DOI: 10.1097/00000478-198403000-00001.
- Weiss L.M., Medeiros L.J., Vickery A.L.Jr. Pathologic features of prognostic significance in adrenocortical carcinoma. *Am J Surg Pathol* 1989;13(3):202–6. DOI: 10.1097/00000478-198903000-00004.
- Bisceglia M., Ludovico O., Di Mattia A. et al. Adrenocortical oncocytic tumors: report of 10 cases and review of the literature. *Int J Surg Pathol* 2004;12(3):231–43. DOI: 10.1177/106689690401200304.
- Lin B.T., Bonsib S.M., Mierau G.W. et al. Oncocytic adrenocortical neoplasms a report of seven cases and review of the literature. *J Surg Pathol* 1998;22(5):603–14. DOI: 10.1097/00000478-199805000-00012.
- Mearini L., Del Sordo R., Costantini E. et al. Adrenal oncocytic neoplasm: a systematic review. *Urol Int* 2013;91(2):125–33. DOI: 10.1159/000345141.
- Heniford B.T., Arca M.J., Walsh R.M., Gill I.S. Laparoscopic adrenalectomy for cancer. *Semin Surg Oncol* 1999;16(4):293–306. DOI: 10.1002/(sici)1098-2388(199906)16:4<293::aid-ssu4>3.0.co;2-e.

Вклад авторов

М.Х. Гебенюв: написание текста рукописи;

З.М. Ахохов: разработка концепции обзора, обзор публикаций по теме статьи, анализ полученных данных, написание текста рукописи.

Authors' contributions

M.Kh. Gebenov: article writing;

Z.M. Akhokhov: development of the review concept, reviewing of publications of the article's theme, analysis of the obtained data, article writing.

ORCID авторов / ORCID of authors

М.Х. Гебенюв / M.Kh. Gebenov: <https://orcid.org/0000-0002-7571-2390>

З.М. Ахохов / Z.M. Akhokhov: <https://orcid.org/0000-0003-0434-564X>

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

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

Финансирование. Работа выполнена без спонсорской поддержки.

Financing. The work was performed without external funding.

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

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

Статья поступила: 15.05.2020. **Принята к публикации:** 04.10.2021.

Article submitted: 15.05.2020. **Accepted for publication:** 04.10.2021.