

Аденоматоидная опухоль правого надпочечника под маской феохромоцитомы: клиническое наблюдение

А.П. Чуприна¹, А.Н. Бобин², М.С. Печерская², Р.Е. Сегедин²

¹ФГБВОУ ВО «Военно-медицинская академия им. С.М. Кирова» Минобороны России; Россия, 194044 Санкт-Петербург, ул. Академика Лебедева, 6;

²ФГБУ «Главный военный клинический госпиталь им. акад. Н.Н. Бурденко» Минобороны России; Россия, 105094 Москва, Госпитальная пл., 3

Контакты: Роман Евгеньевич Сегедин gvkg-seghedin@mail.ru

По данным сводной аутопсийной статистики, распространенность случайно выявленных образований надпочечников составляет 6 %. Компьютерная томография, выполненная по другим показаниям, выявляет образования надпочечников в 4 % случаев. В диагностической стратегии новообразований надпочечников основной считается оценка гормональной активности и злокачественного потенциала. При этом отсутствие клинических проявлений в течение продолжительного времени и их слабая выраженность являются частыми причинами недооценки сложности ситуации и возможных интраоперационных и послеоперационных осложнений. Описаны случаи, сопровождавшиеся гипертензивными кризами, связанными с недиагностированной гормональной активностью аденомы или адренокортикального рака. В статье описан клинический случай пациента, у которого гормональная активность маскировала крайне редкое доброкачественное новообразование.

Ключевые слова: новообразование надпочечника, феохромоцитома, аденоматоидная опухоль, опухоль из мезотелиальной ткани, инциденталомы надпочечников, адреналэктомия

Для цитирования: Чуприна А.П., Бобин А.Н., Печерская М.С., Сегедин Р.Е. Аденоматоидная опухоль правого надпочечника под маской феохромоцитомы: клиническое наблюдение. Онкоурология 2023;19(4):114–8. DOI: <https://doi.org/10.17650/1726-9776-2023-19-4-114-118>

Adenomatoid tumor of the right adrenal gland masked as pheochromocytoma: clinical case

A.P. Chuprina¹, A.N. Bobin², M.S. Pecherskaya², R.E. Segedin²

¹S.M. Kirov Military Medical Academy, Ministry of Defense of Russia; 6 Akademika Lebedeva St., Saint Petersburg 194044, Russia;

²Main Military Clinical Hospital named after academician N.N. Burdenko; Ministry of Defense of Russia; 3 Gospital'naya Ploshchad', Moscow 105094, Russia

Contacts: Roman Evgen'evich Segedin gvkg-seghedin@mail.ru

According to summary autopsy data, the incidence of accidentally detected neoplasms of the adrenal glands is 6 %. Computed tomography performed for other reasons shows adrenal gland lesions in 4 % of cases. In diagnostic strategy for adrenal gland lesions, the most important factors to consider are hormonal activity and malignant potential. Moreover, absence of clinical manifestations for long periods of time and their mildness frequently lead to underestimation of the seriousness of the situation. Therefore, surgical treatment can be accompanied by multiple negative consequences. Literature describes cases accompanied by hypertensive crises which subsequently turned out to be hormonally inactive adenomas or adrenocortical carcinoma. The article describes a patient in whom hormonal activity masked an extremely rare benign tumor.

Keywords: adrenal gland lesion, pheochromocytoma, adenomatoid tumor, mesothelial tissue tumor, adrenal gland incidentaloma, adrenalectomy

For citation: Chuprina A.P., Bobin A.N., Pecherskaya M.S., Segedin R.E. Adenomatoid tumor of the right adrenal gland masked as pheochromocytoma: clinical case. Onkourologiya = Cancer Urology 2023;19(4):114–8. (In Russ.). DOI: <https://doi.org/10.17650/1726-9776-2023-19-4-114-118>

Введение

Аденоматоидная опухоль (D35.0) надпочечников — доброкачественное образование мезотелиального происхождения. Надпочечник лишен мезотелия, поэтому опухоль может происходить из остатков эмбрионального мезотелия или захваченных плюрипотентных мезенхимных клеток [1, 2]. Опухоль диагностируется в основном как случайная находка. Аденоматоидная опухоль обычно локализуется в мужских и женских половых путях, чаще — в придатках яичка у мужчин и в маточной трубе у женщин [2–4]. Имеются единичные описания экстрагенитальных аденоматоидных опухолей в сердце, поджелудочной железе, коже, плевре, сальнике, лимфатических узлах, забрюшинном пространстве, брыжейке кишечника, периадренальной мягкой ткани и надпочечниках [5–13].

Аденоматоидные опухоли надпочечников чаще возникают в возрасте 20–65 лет (в среднем 42 года), при соотношении мужчин и женщин 10:1. Левосторонние опухоли встречаются чаще. Размер опухолей обычно составляет 0,5–17 см. Большинство из них хорошо очерчены и плотные, на срезе цвет от серого до желто-коричневого. Иногда опухоли могут быть кистозными. При микроскопическом исследовании опухоль хорошо отграничена, но может распространяться на кору, капсулу надпочечника или экстранадпочечниковую жировую ткань. Распространены множественные модели роста, включая солидный, аденоидный, ангиоматоидный и кистозный. Как правило, каналцы разного размера и формы, расположены в фиброзной соединительно-тканной строме с переменным преобладанием. Каналцы выстланы эпителиальными и уплощенными эндотелиально-подобными клетками. Цитоплазматическая вакуолизация создает обманчивое впечатление схожести клеток с перстневидными. Разрастание гладких мышц стромы в надпочечниках встречается реже, чем в опухолях урогенитального тракта.

Неопластические клетки могут экспрессировать:

- WT-1 — ген, расположенный на хромосоме 11p13, кодирующий фактор транскрипции, ДНК-связывающий нуклеопротеин массой 52–62 кДа, который играет роль в первую очередь в развитии мочеполовых органов. WT-1 особенно часто используется для дифференциальной диагностики злокачественной мезотелиомы и серозной карциномы яичников от несерозных карцином [14];
- Calretinin — кальцийсвязывающий белок с молекулярной массой 29 кДа и член семейства белков EF-hand, к которому также принадлежит S-100 [15]. Эффективен для дифференциальной диагностики мезотелиомы от аденокарцином легочного и прочего происхождения. Также показана эффективность антитела к Calretinin при дифференциальной диагностике опухолей коры надпочечников от феохромоцитом [16];

- подоплагин (D2-40) — трансмембранный онкофетальный O-связанный сиалогликопротеин (типа муцина) с молекулярной массой 40 кДа, обнаруживаемый в лимфатическом эндотелии, мезотелии и яичках плода (а также в других клетках D2-40), представляет собой моноклональное антитело, реагирующее на подоплагин, проявляя мембранное окрашивание [17];
- мезотелин — белок массой 40 кДа, который экспрессируется в мезотелиальных клетках, проявляя цитоплазматическое окрашивание [18];
- CK7 — кератин 2-го типа простого неороговевающего эпителия; молекулярная масса 51,4 кДа. Мембранный/цитоплазматический маркер, экспрессирующийся во многих нормальных клетках эпителия и эпителиальных опухолях.

Неопластические клетки экспрессируют в различной степени CK5/6, не экспрессируют ингибин α , MelanA, CD15, CD31, CD34, CK20. Ультраструктурный анализ показывает микроворсинки и десмосомы [1].

Дифференциальный диагноз проводят с первичной или метастатической аденокарциномой, ангиосаркомой, а также со злокачественной мезотелиомой, лимфангиомой, аденомой коры надпочечника с кистозной дегенерацией и карциномой коры надпочечника [1, 13]. При компьютерной томографии с контрастным усилением отмечается неоднородная гиподенсивная масса с четко очерченной границей; результаты магнитно-резонансной томографии неспецифичны [1].

Первая аденоматоидная опухоль половых путей была описана в 1945 г. A. Golden и J.E. Ash [19, 20]. С появлением и развитием ультразвукового сканирования, компьютерной томографии и магнитно-резонансной томографии в конце 1980-х годов качество диагностики аденоматоидных опухолей надпочечников существенно возросло [21]. До 2015 г. в англоязычной медицинской литературе было зарегистрировано 38 случаев аденоматоидных опухолей надпочечников, резюмированных в работе M. Zhao и соавт. [18]. Истинная заболеваемость аденоматоидными опухолями надпочечников неизвестна.

Представляем клинико-патологические и иммуногистохимические особенности течения аденоматоидной опухоли правого надпочечника, клинически принятой за феохромоцитому, у 42-летнего мужчины.

Клинический случай

У пациента Н., 1978 года рождения, в 2017 г. впервые было выявлено объемное образование правого надпочечника. Пациент предъявлял жалобы на периодическое повышение артериального давления, что было расценено как манифестация идиопатической артериальной гипертензии. При компьютерной томографии обнаружено образование размером 31 × 34 × 42 мм, нативной плотности 34 единицы Хаунсфилда (HU), без накопления контраст-



Рис. 1. Макропрепарат
Fig. 1. Macropreparation

ного вещества. При исследовании суточной мочи на метаболиты катехоламинов их превышения не выявлено.

При очередном обследовании пациента в 2021 г. не обнаружено динамики размера образования при повышении плотности опухоли до 57 HU. Уровни альдостерона, ренина и кортизола крови были в пределах нормальных значений. При исследовании суточной мочи на метаболиты катехоламинов выявлено повышение норметанефрина до 1079 мкг/сут (норма 7–158 мкг/сут) и метанефрина до 878,85 мкг/сут (норма 1,6–192 мкг/сут). В связи с этим клиническая ситуация расценена как феохромоцитомы.

В целях гипотензивной терапии и профилактики развития симпатoadrenalового криза пациенту были назначены альфа-адреноблокаторы (доксазозин 1,5 мг/сут). При обследовании у пациента выявлены приобретенный порок сердца: двустворчатый аортальный клапан с аортальной недостаточностью II степени, пролапс передней створки митрального клапана I степени с митральной регургитацией I степени, а также хронический гастрит, ремиссия, распространенный остеохондроз позвоночника, правосторонний сколиоз II степени, грудного отдела позвоночника, алиментарно-конституциональное ожирение I степени.

Пациенту была выполнена лапароскопическая адреналэктомия справа. Под сочетанной анестезией (пери-дуральная + искусственная вентиляция легких) выполнена пункция брюшной полости иглой Вереша, наложен карбоксиперитонеум, в брюшную полость введено 4 троакара. Рассечена париетальная брюшина вдоль восходящей ободочной кишки. Обнажено забрюшинное пространство, в котором латерально от нижней полой вены и выше правой почки визуализировалось объемное образование. Выделена переднелатеральная поверхность нижней полой вены от правой почечной до печеночных вен. Визуализирована правая надпочечниковая вена, которая трижды клипирована и пересечена между клипсами. Затем правый надпочечник с опухолью и прилежащей жировой клетчаткой выделен из окружающих тканей. Препарат помещен в контейнер и удален. Длительность операции составила 60 мин. Продолжительность анестезии

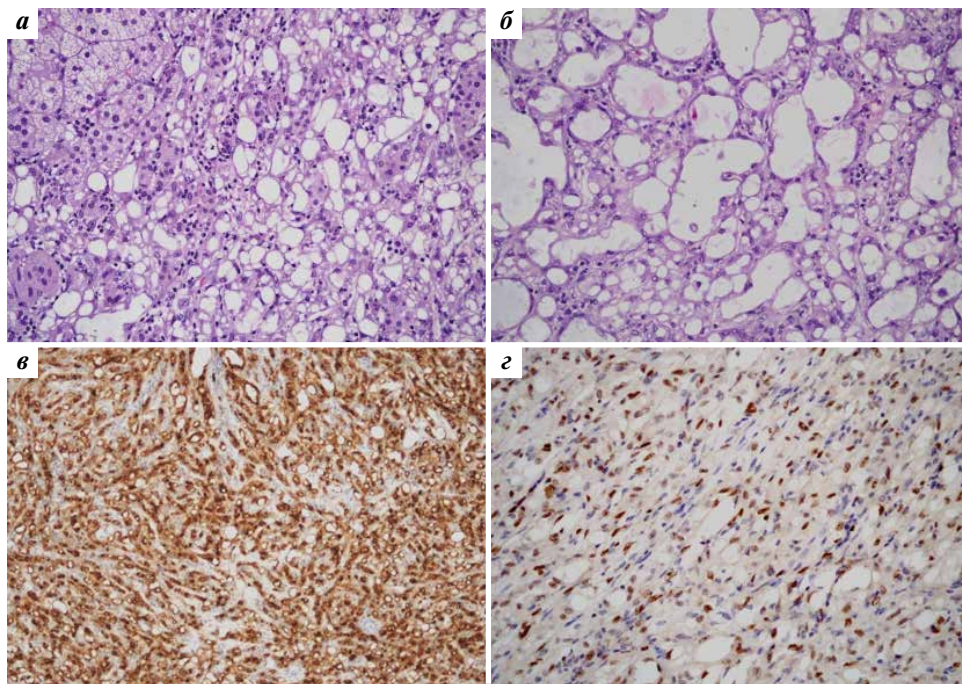


Рис. 2. Гистологическое исследование: а — окраска гематоксилином и эозином ($\times 20$); б — окраска гематоксилином и эозином ($\times 40$); в — экспрессия антитела подопланина (D2-40); г — экспрессия антитела WT-1
Fig. 2. Histological examination: а — hematoxylin and eosin staining ($\times 20$); б — hematoxylin and eosin staining ($\times 40$); в — podoplanin (D2-40) expression; г — WT-1 antibody expression

зии — 120 мин. Объем интраоперационной кровопотери минимален. Интраоперационно значимых изменений артериального давления не зафиксировано. Послеоперационный период протекал без осложнений.

Макроскопически: в корковом веществе надпочечника располагалась опухоль с четкой границей, округлой формы, диаметром 40 мм, серо-коричневого цвета (рис. 1). **Микроскопически:** в корковом слое надпочечника хорошо отграниченная опухоль, состоящая из небольших полостей и щелей, выстланных уплощенными вытянутыми клетками, напоминающими эпителиальные, мезотелиальные и эндотелиальные клетки (рис. 2).

Заключение

Аденоматоидная опухоль надпочечника — крайне редко встречающееся доброкачественное новообразование, которое обычно выявляется случайно. Однако в представленном клиническом случае у больного данное заболевание протекало под маской феохромоцитомы, что позволило провести раннюю диагностику.

Данная клиническая симптоматика, возможно, была связана с компрессией опухоли на ткани надпочечника, поскольку после адреналэктомии отмечена нормализация артериального давления и уровня метаболитов гормонов коры надпочечников в суточной порции мочи (норметанефрин 109 мкг/сут и метанефрин 87,45 мкг/сут). Таким образом, наблюдение подтверждает, что объемные образования надпочечников могут вызывать развитие клинической картины гормонально-активных опухолей, не являясь таковыми. По нашему мнению, в целях снижения риска развития осложнений такие пациенты должны быть оперированы с соответствующей предоперационной подготовкой.

Данное клиническое наблюдение показывает сложности дифференциальной диагностики злокачественных и доброкачественных образований надпочечников из-за схожести клинической картины и отсутствия корреляции размеров образований с их структурой и плотностными характеристиками при компьютерной томографии.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. WHO Classification of Tumours. Available at: <https://tumourclassification.iarc.who.int/chaptercontent/38/71>.
2. Lehman K.A., Zynger D.L. Adrenal gland & paraganglia. Available at: <https://www.pathologyoutlines.com/topic/adrenaladenomatoid.html>.
3. Lack E.E. Tumors of the adrenal gland. In: Diagnostic Histopathology of Tumors. Ed.: C. Fletcher. 3rd edn. Churchill Livingstone Elsevier, 2007. Pp. 1099–122.
4. Delellis R.A., Mangray S. The adrenal glands. In: Sternberg's Diagnostic Surgical Pathology. Eds.: S.E. Mills, D. Carter, J. Green-son. 5th ed. Lippincott Williams and Wilkins, 2009. Pp. 545–567.
5. Adem C., Schneider M., Hoang C. Pathologic quiz case: an unusual umbilical mass. Arch Pathol Lab Med 2003;127(7):303–4. DOI: 10.5858/2003-127-e303-PQCAU
6. Kaplan M.A., Tazelaar H.D., Hayashi T. et al. Adenomatoid tumor of the pleura. Am J Surg Pathol 1996;20(10):1219–23. DOI: 10.1097/0000478-199610000-00007
7. Hanrahan J.B. A combined papillary mesothelioma and adenomatoid tumor of the omentum: report of the case. Cancer 1971;27: 109–14.
8. Isotalo P.A., Nascimento A.G., Trastek V.F. et al. Extragenital adenomatoid tumor of a mediastinal lymph node. Mayo Clin Proc 2003;78(3):350–4. DOI: 10.4065/78.3.350
9. Benisch B.M. A retroperitoneal mesonephric cystadenoma with features of the adenomatoid tumor of the genital tract. J Urol 1973;110(1):44–6. DOI: 10.1016/s0022-5347(17)60110-1
10. Craig J.R., Hart W.R. Extragenital adenomatoid tumor: evidence for mesothelial theory of origin. Cancer 1979;43(5):1678–82. DOI: 10.1002/1097-0142(197905)43:5<1678::aid-cncr2820430518>3.0.co;2-n
11. Evans C.P., Vaccaro J.A., Storrs B.G. Suprarenal occurrence of an adenomatoid tumor. J Urol 1988;139(2):348–9. DOI: 10.1016/s0022-5347(17)42410-4
12. Hoffmann M., Yedibela S., Hohenberger W. et al. Adenomatoid tumor of the adrenal gland. Int J Surg 2008;6(6):485–7. DOI: 10.1016/j.ijsu.2006.06.025
13. Raaf H.N., Grant L.D., Santoscoy C. et al. Adenomatoid tumor of the adrenal gland: a report of four new cases and a review of the literature. Mod Pathol 1996;9(11):1046–51. <https://www.nordiqc.org/epitope.php?id=77>
14. <http://e-immunohistochemistry.info/web/Calretinin.htm>
15. http://www.microtesty.ru/catalog/calretinin_polyclonal_rabbit
16. <https://www.pathologyoutlines.com/topic/stainsD240.html>
17. Zhao M., Li C., Zheng J. et al. Cystic lymphangioma-like adenomatoid tumor of the adrenal gland: report of a rare case and review of the literature. Int J Clin Exp Pathol 2013;6(5):943–50.
18. Golden A., Ash J.E. Adenomatoid tumors of the genital tract. Am J Pathol 1945;21(1):63–79.
19. Mantero F., Terzolo M., Arnaldi G. et al. A survey on adrenal incidentaloma in Italy. Study Group on Adrenal Tumors of the Italian Society of Endocrinology. J Clin Endocrinol Metab 2000;85(2): 637–44. DOI: 10.1210/jcem.85.2.6372
20. Evans C.P., Vaccaro J.A., Storrs B.G., Christ P.J. Suprarenal occurrence of an adenomatoid tumor. J Urol 1988;139(2):348–9. DOI: 10.1016/s0022-5347(17)42410-4

Вклад авторов

А.П. Чуприна: ведение больного, обеспечение оперативного пособия, редактирование текста статьи;
А.Н. Бобин: оценка макро- и микропрепарата, анализ литературы, редактирование текста статьи;
М.С. Печерская: подготовка микропрепарата, оценка макро- и микропрепарата, анализ литературы, написание статьи;
Р.Е. Сегедин: ведение больного, обеспечение оперативного пособия, анализ литературы, написание статьи.

Authors' contributions

A.P. Chuprina: patient management, surgical intervention, article editing;
A.N. Bobin: evaluation of gross specimen and microsamples, literature analysis, article editing;
M.S. Pecherskaya: microsample preparation, evaluation of gross specimen and microsamples, literature analysis, article writing;
R.E. Segedin: patient management, surgical intervention, literature analysis, article writing.

ORCID авторов / ORCID of authors

А.П. Чуприна / A.P. Chuprina: <https://orcid.org/0000-0002-3795-185X>
А.Н. Бобин / A.N. Bobin: <https://orcid.org/0000-0002-7274-3431>
М.С. Печерская / M.S. Pecherskaya: <https://orcid.org/0000-0003-0835-1545>
Р.Е. Сегедин / R.E. Segedin: <https://orcid.org/0000-0003-3261-3736>

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

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

Финансирование. Работа выполнена без спонсорской поддержки.

Funding. 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.