

<https://doi.org/10.21682/2311-1267-2019-6-4-93-96>

Билатеральная лейомиома надпочечников: редкий случай и дифференциальная диагностика с точки зрения рентгенолога

Н.А. Струмила, А.С. Краснов, Г.В. Терешенко

ФГБУ «НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева» Минздрава России; Россия, 117997, Москва, ул. Саморы Машела, 1

Контактные данные: Наталья Алексеевна Струмила natalya.strumila@fccho-moscow.ru

Лейомиома – доброкачественная опухоль гладкомышечных клеток. Локализация данного образования в надпочечниках является крайне редкой, еще реже встречается поражение обоих надпочечников. В литературе нами было найдено менее 10 описанных случаев возникновения подобной патологии у детей. В статье представлен случай 17-летней девушки с жалобами на тахикардию и повышение давления, у которой впоследствии были выявлены билатеральные образования надпочечников. При гистологической верификации был установлен диагноз лейомиомы.

Ключевые слова: образование надпочечника, компьютерная томография, магнитно-резонансная томография, детская онкология, доброкачественная опухоль

Для цитирования: Струмила Н.А., Краснов А.С., Терешенко Г.В. Билатеральная лейомиома надпочечников: редкий случай и дифференциальная диагностика с точки зрения рентгенолога. *Российский журнал детской гематологии и онкологии* 2019;6(4):93–6.

Bilateral adrenal leiomyoma: a rare case and differential diagnosis from the point of view of the radiologist

N.A. Strumila, A.S. Krasnov, G.V. Tereshchenko

Dmitry Rogachev National Medical Research Center of Pediatric Hematology, Oncology and Immunology, Ministry of Health of Russia; 1 Samory Mashela St., Moscow, 117997, Russia

Leiomyoma is a benign tumor of smooth muscle cells. Localization of this formation in the adrenal glands is extremely rare, even less common is the defeat of both adrenal glands. In the literature, we found less than 10 described cases of the occurrence of a similar pathology in children. The article presents a case of a 17-year-old girl with complaints of tachycardia and an increase in pressure, which subsequently revealed bilateral adrenal masses. Histological verification diagnosed leiomyoma.

Key words: adrenal gland mass, computed tomography, magnetic resonance imaging, pediatric oncology, benign tumor

For citation: Strumila N.A., Krasnov A.S., Tereshchenko G.V. Bilateral adrenal leiomyoma: a rare case and differential diagnosis from the point of view of the radiologist. *Russian Journal of Pediatric Hematology and Oncology* 2019;6(3):93–6.

Информация об авторах

Н.А. Струмила: врач-рентгенолог, лаборант-исследователь отдела лучевой диагностики НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева, e-mail: natalya.strumila@fccho-moscow.ru; <https://orcid.org/0000-0003-4164-004X>

А.С. Краснов: врач-рентгенолог, научный сотрудник отдела лучевой диагностики НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева, e-mail: alexey.krasnov@fccho-moscow.ru; <https://orcid.org/0000-0003-1099-9332>

Г.В. Терешенко: к.м.н., заведующая рентгенологическим отделением НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева, e-mail: Galina.Tereshenko@fccho-moscow.ru; <https://orcid.org/0000-0001-7317-7104>

Information about the authors

N.A. Strumila: Research Assistant of Department Radiation Diagnosis Dmitry Rogachev National Medical Research Center of Pediatric Hematology, Oncology and Immunology, Ministry of Health of Russia, e-mail: natalya.strumila@fccho-moscow.ru; <https://orcid.org/0000-0003-4164-004X>

A.S. Krasnov: Researcher of Department Radiation Diagnosis Dmitry Rogachev National Medical Research Center of Pediatric Hematology, Oncology and Immunology, Ministry of Health of Russia, e-mail: alexey.krasnov@fccho-moscow.ru; <https://orcid.org/0000-0003-1099-9332>

G.V. Tereshchenko: Cand. of Sci. (Med.), Head of Radiology Department, e-mail: Galina.Tereshenko@fccho-moscow.ru; <https://orcid.org/0000-0001-7317-7104>

Вклад авторов

Н.А. Струмила: обзор публикаций по теме статьи, описание компьютерной и магнитно-резонансной томографии, подготовка текста рукописи

А.С. Краснов: обзор публикаций по теме статьи, подготовка списка литературы

Г.В. Терешенко: разработка дизайна статьи, научное редактирование статьи

Authors' contributions

N.A. Strumila: review of publications on the topic of the article, writing CT and MRI reports, writing the text of the article

A.S. Krasnov: review of publications on the topic of the article, preparation of a list of references

G.V. Tereshchenko: design development of the article, scientific edition of the article

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов. / **Conflict of interest.** The authors declare no conflict of interest.

Финансирование. Исследование проведено без спонсорской поддержки. / **Funding.** The study was performed without external funding.

Введение

Лейомиома — редкая доброкачественная опухоль, происходящая из клеток гладких мышц. Образование может локализоваться в любом месте организма, где есть гладкомышечные клетки. Чаще всего встречается в желудочно-кишечном, урогенитальном трактах и коже [1]. Локализация опухоли в надпочечниках у детей и взрослых встречается редко. Билатеральная локализация составляет менее половины описанных случаев поражения надпочечников. Преимущественно болеют женщины репродуктивного возраста, однако возраст установления диагноза имеет существенные вариации [2]. Первичная лейомиома надпочечников возникает из надпочечниковой вены и/или ее притоков [3, 4]. Во многих случаях данная патология встречается у иммунокомпрометированных пациентов [5].

Клинический случай

Пациентка, 17 лет, поступила в НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева с жалобами на слабость, тахикардию, периодические подъемы давления вплоть до 200/100 мм рт. ст. В крови пациентки выявлены копии ДНК вируса Эпштейна–Барр в количестве до 1600. Установлен сопутствующий диагноз — первичный иммунодефицит неясной этиологии. На диагностическом этапе была проведена компьютерная томография (КТ) органов брюшной полости, при которой визуализировались гипоплазия левой почки, стеноз почечных, селезеночной и верхней брыжеечной артерий. Также были выявлены объемные образования обоих надпочечников с четкими ровными контурами, содержащие в своей структуре множественные кальцинаты, накапливающие контрастный препарат (рис. 1).

В данном случае проводилась дифференциальная диагностика между феохромоцитомой и кровоизлиянием в надпочечник. В целях исключения феохромоцитомы

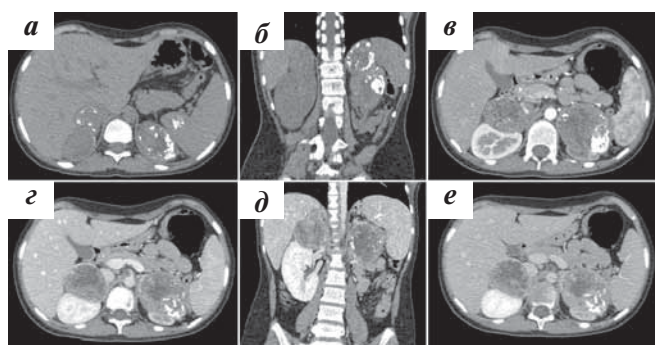


Рис. 1. На представленных компьютерных томограммах в аксиальной и коронарной плоскостях визуализируются образования в обоих надпочечниках с четкими ровными контурами, накапливающие контрастный препарат, неоднородной структуры за счет наличия участков гиподенсивного сигнала и кальцинатов: а, б — нативная фаза исследования; в — артериальная фаза; г, д — венозная фаза, е — паренхиматозная фаза

Fig. 1. The presented computer tomograms in the axial and coronary planes visualize formations in both adrenal glands with clear even contours, accumulating a contrast agent, heterogeneous structure due to the presence of sections of the hypointense signal and calcinates: а, б — the native phase of the study; в — arterial phase; г, д — venous phase, е — parenchymal phase

была выполнена скintiграфия с ^{123}I -метайодбензилгуанидином (^{123}I -MIBG), достоверных данных за накопление радиофармпрепарата в ткани опухоли не получено. При выполнении позитронно-эмиссионной томографии/КТ выявлено неоднородное накопление ^{18}F -фтордезоксиглюкозы (^{18}F -ФДГ) в образованиях обоих надпочечников.

Была проведена лапаротомия с туморадреналнефруретерэктомией слева с сопутствующей биопсией образования правого надпочечника. В соответствии с гистологическим заключением морфологическая картина соответствовала лейомиоме.

После оперативного вмешательства выполнена МРТ органов брюшной полости, при которой визуализировалось образование в правом надпочечнике с четкими ровными контурами, неоднородным сигналом на T1- и T2-взвешенных изображениях (ВИ), не ограничивающее диффузию, накапливающее контрастный препарат (рис. 2).

Обсуждение

При обнаружении подобных образований в надпочечниках у детей дифференциальный диагноз проводится между нейробластомой (НБ), ганглионевромой, феохромоцитомой, инфекционным поражением (туберкулез, гистоплазмоз) и кровоизлиянием в надпочечник с кальцификацией. В данном случае ввиду возраста пациента и нормального уровня в крови нейронспецифической енолазы диагноз НБ был исключен. Видимые признаки инфекции отсутствовали, не было воспалительных изменений в легочной ткани, лабораторные признаки инфекционных агентов также не были выявлены — это позволило исключить из дифференциального ряда инфекционное поражение надпочечников.

НБ и ганглионеврома входят в группу опухолей, происходящих из клеток первичного нервного гребня, которые являются предшественниками сим-

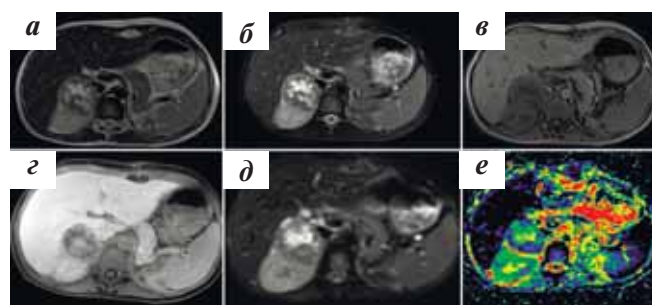


Рис. 2. На представленных магнитно-резонансных томограммах в правом надпочечнике визуализируется объемное гетерогенное кистозно-солидное образование с четкими ровными контурами, не ограничивающее диффузию, накапливающее контрастный препарат: а — T2-ВИ; б — T2-ВИ с подавлением сигнала от жировой ткани; в — T1-ВИ; г — T1-ВИ с использованием контрастного усиления; д — диффузно-взвешенное изображение; е — карта измеряемого коэффициента диффузии

Fig. 2. The presented magnetic resonance tomograms in the right adrenal gland visualize a volumetric heterogeneous cystic-solid formation with clear even contours, not limiting diffusion, accumulating a contrast agent: а — T2-WI; б — T2-WI with suppression of the signal from adipose tissue; в — T1-WI; г — T1-WI with contrast enhancement; д — diffuse-weighted image; е — map of the measured diffusion coefficient

патической нервной системы [6]. НБ – менее дифференцированная, более агрессивная злокачественная опухоль, которая встречается в первом 5-летию жизни, – до 90 % пациентов в возрасте младше 5 лет, пик заболеваемости приходится на период 2–3 года. Ганглионеврома представляет собой опухоль с более высокой степенью дифференцировки клеток, которая встречается в подростковом и взрослом возрасте [7]. Билатеральное поражение надпочечников встречается редко [8]. На компьютерных томограммах опухоль выглядит как большое гетерогенное образование, с некрозами, кровоизлияниями, участками кальцификации различных размеров и форм, которые, по разным данным, могут встречаться вплоть до 85 % всех случаев [9].

Феохромоцитомы – это редкие катехоламин-секретирующие опухоли, около 90 % которых развиваются в тканях надпочечников [10]. Примерно 10 % всех феохромоцитом встречаются в детском возрасте [11]. У детей с данной патологией синхронное билатеральное поражение надпочечников наблюдается в 20 % случаев [12]. При визуализации на КТ данные образования будут выглядеть как однородные (если имеют небольшой размер) или гетерогенные образования, содержащие участки жира, кистозной трансформации, кровоизлияний, некрозов. Кальцификация образования присутствует практически у 30 % пациентов [13].

Лейомиома является достаточно редкой доброкачественной опухолью, развивающейся из гладкомышечных клеток. Локализация образования, как в представленном случае, в обоих надпочечниках – крайне редка. В литературе описано не более 20 случаев постановки подобного диагноза [2]. В различных статьях на данный момент нами было найдено 6 педиатрических случаев лейомиом надпочечников, 3 из которых имели билатеральный характер [14–19].

Лейомиомы надпочечников встречаются при иммуносупрессиях, таких как синдром приобретенного иммунодефицита, пересадка органов или химиотерапия. Отмечена связь с вирусом Эпштейна–Барр [5, 20]. Предполагается, что измененный иммунный ответ объясняет увеличение распространенности опухолей мягких тканей при иммунодефицитах [19]. При визуализации лейомиомы выглядят как объемные гетерогенные образования, которые могут содержать участки кистозной или жировой перестройки, участки кровоизлияния, некрозы [21]. Случаи кальцинации единичны и являются очень редкими для данной опухоли [22].

Наиболее частым инфекционным агентом, способным вызвать поражение надпочечников, является *M. tuberculosis*. Поражение может быть изолированным, что встречается крайне редко (около 3 % наблюдений) [23]. При раннем гематогенном распространении возникает неизолитированный туберкулез надпочечников, который может встречаться у 6 % пациентов [24]. Чаше всего в процесс вовлекаются оба надпочечника, однако их вовлечение всегда неравномерно. На КТ в начале развития заболевания мы увидим увеличенные надпочечники, возможно, с участками гиперденсивного казеозного некроза. При хроническом течении заболевания в данных увеличенных в размере надпочечниках будут образовываться кальцинаты, возникнет неровность контура [25].

Заключение

Таким образом, данный случай показывает, что при обнаружении у пациента образования в одном или обоих надпочечниках, помимо НБ, ганглионевромы, феохромоцитомы, инфекционного поражения и кровоизлияния, не следует забывать включать в дифференциальный ряд такую редкую патологию, как лейомиома.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Ho Y.H., Yap W.M., Chuah K.L. Solitary fibrous tumor of the adrenal gland with unusual immunophenotype: a potential diagnostic problem and a brief review of endocrine organ solitary fibrous tumor. *Endocr Pathol* 2010;21(2):125–9. doi: 10.1007/s12022-010-9113-z.
2. Corti M., Carolis L.D., Véliz L., Campitelli A., Haab G.A. Adrenal Leiomyoma: A Rare Tumor Presented as an Incidentaloma in a Patient with AIDS. *Mathews J HIV AIDS* 2016;1(1):006.
3. Lin J., Wasco M.J., Korobkin M., Doherty G., Giordano T.J. Leiomyoma of the adrenal gland presenting as a non-functioning adrenal incidentaloma: case report and review of the literature. *Endocr Pathol* 2007;18(4):239–43. doi: 10.1007/s12022-008-9013-7.
4. Lack E. Smooth muscle neoplasms. *AFIP Atlas of Tumor Pathology, Tumors of the Adrenal Glands and Extraadrenal Paraganglia. Fourth Series. Fascicle, 2007.*
5. Huei T.J., Lip H.T.C., Rahman M., Arulanantham S. Large adrenal leiomyoma presented as adrenal incidentaloma in an AIDS patient: a rare entity. *Med J Malaysia* 2017;72(1):65–7. PMID: 28255146.
6. Rha S.E., Byun J.Y., Jung S.E., Chun H.J., Lee H.G., Lee J.M. Neurogenic tumors in the abdomen: tumor types and imaging characteristics. *Radiographics* 2003;23(1):29–43. doi: 10.1148/rg.231025050.
7. Lonergan G.J., Schwab C.M., Suarez E.S., Carlson C.L. From the archives of the AFIP: neuroblastoma, ganglioneuroblastoma, and ganglioneuroma: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 2002;22(4):911–34. doi: 10.1148/radiographics.22.4.g02j115911.
8. Pagès P.M., Dufour C., Fasola S., Michon J., Boutard P., Gentet J.C., Hartmann O. Bilateral adrenal neuroblastoma. *Pediatr Blood Cancer* 2009;52(2):196–202. doi: 10.1002/pbc.21765.
9. Papaioannou G., McHugh K. Neuroblastoma in childhood: review and radiological findings. *Cancer Imaging* 2005;5(1):116–27. doi: 10.1102/1470-7330.2005.0104.
10. Blake M.A., Kalra M.K., Maher M.M., Sahani D.V., Sweeney A.T., Mueller P.R., Boland G.W. Pheochromocytoma: an imaging chameleon. *Radiographics* 2004;Suppl 1:S87–99. doi: 10.1148/rg.24si045506.
11. Sarathi V. Characteristics of Pediatric Pheochromocytoma/paraganglioma. *Indian J Endocrinol Metab* 2017;21(3):470–4. doi: 10.4103/ijem.IJEM_558_16.
12. Prabhu M., Joseph T.T., Shetty N., Chaudhuri S. *Saudi J Anaesth* 2013;7(2):197–9. doi: 10.4103/1658-354X.114051.
13. Johnson P.T., Horton K.M., Fishman E.K. Adrenal mass imaging with multidetector CT: pathologic conditions, pearls, and pitfalls. *Radiographics* 2009;29(5):1333–51. doi: 10.1148/rg.295095027.
14. Mouchet F., Ninane J., Gosseye S., Verellen C., Bonnier C., Evrard P., Cornu G. Leiomyoma of the suprarenal gland in a child with ataxia-telangiectasia. *Pediatr Hematol Oncol* 1991;8(3):235–41. doi: 10.3109/08880019109033457.
15. Jimenez-Heffernan J.A., Hardisson D., Palacios J., Garcia-Viera M., Gamallo C., Nistal M. Adrenal gland leiomyoma in a child with acquired immunodeficiency syndrome. *Pediatr Pathol Lab Med* 1995;15(6):923–9. doi: 10.3109/15513819509027028.
16. Demirel Ş., Erk O., Akkaya V., Tunaci A., Tanakol R., Terzioğlu T., Şenkal Ö. Multiple vascular leiomyomas involving bilateral adrenal glands, spleen, and epicardium, associated with bilateral testicular microlithiasis and empty sella turcica. *J Pediatr Surg* 1997;32(9):1365–7. doi: 10.1016/s0022-3468(97)90324-9.
17. Rosenfeld D.L., Girgis W.S., Underberg-Davis S.J. Bilateral smooth-muscle tumors of the adrenals in a child with AIDS. *Pediatr Radiol* 1999;29(5):376–8. doi: 10.1007/s002470050611.
18. Chura J.C., Truskinovsky A.M., Judson P.L., Johnson L., Geller M.A., Downs L.S. Jr. Positron emission tomography and leiomyomas: clinicopathologic analysis of 3 cases of PET scan-positive leiomyomas and literature review. *Gynecol Oncol* 2007;104(1):247–52. doi: 10.1016/j.ygyno.2006.09.024.
19. Parelkar S.V., Sampat N.P., Sanghvi B.V., Joshi P.B., Sahoo S.K., Patel J.L., Oak S.N. Case report of bilateral adrenal leiomyoma with review of literature. *Pediatr Surg Int* 2013;29(6):655–8. doi: 10.1007/s00383-013-3264-1.
20. Monforte-Muñoz H., Kapoor N., Saavedra J.A. Epstein-Barr virus-associated leiomyomatosis and posttransplant lymphoproliferative disorder in a child with severe combined immunodeficiency: case report and review of the literature. *Pediatr Dev Pathol* 2003;6(5):449–57. doi: 10.1007/s10024-003-8096-x.
21. Arleo E.K., Schwartz P.E., Hui P., McCarthy S. Review of leiomyoma variants. *AJR Am J Roentgenol* 2015;205(4):912–21. doi: 10.2214/AJR.14.13946.
22. Kumar S., Nanjappa B., Agrawal P., Pushkarna A. Large bilateral adrenal leiomyomas presenting as calcified adrenal masses: a rare case report. *Korean J Urol* 2014;55(5):363–6. doi: 10.4111/kju.2014.55.5.363.
23. Alvarez S., McCabe W.R. Extrapulmonary tuberculosis revisited: a review of experience at Boston City and other hospitals. *Medicine (Baltimore)* 1984;63(1):25–55. PMID: 6419006.
24. Lam K.Y., Lo C.Y. A critical examination of adrenal tuberculosis and a 28-year autopsy experience of active tuberculosis. *Clin Endocrinol (Oxf)* 2001;54(5):633–9. doi: 10.1046/j.1365-2265.2001.01266.x.
25. Vinnard C., Blumberg E.A. Endocrine and Metabolic Aspects of Tuberculosis. *Microbiol Spectr* 2017;5(1). doi: 10.1128/microbiolspec.TNMI7-0035-2016.

Статья поступила в редакцию: 14.02.2019. Принята в печать: 25.04.2019.
Article was received by the editorial staff: 14.02.2019. Accepted for publication: 25.04.2019.