
Adenomatoidný tumor pravej nadobličky: kazuistika

Koreň J., Čunderlík P.

Oddelenie patológie, Fakultná nemocnica s poliklinikou F. D. Roosevelta,
Banská Bystrica

Súhrn

Adenomatoidný tumor nadobličky je veľmi vzácny primárny tumor s dobrou prognózou. Jeho mezotelový pôvod bol potvrdený v mnohých prácach rôznych autorov. Tento pôvod bol dokázaný imunohistochemicky a s pomocou elektrónovej mikroskopie. V našej kazuistike podávame prípad adenomatoidného tumoru pravej nadobličky u 55-ročnej ženy. Jedná sa o druhý známy prípad tohto benígneho nádoru u dospelaj ženy. Tiež zdôrazňujeme nález intraluminálnych mostíkov, predstavujúcich typickú histologickú črtu tohto nádoru vo všeobecnosti. Tieto mostíky neboli doteraz u adenomatoidného tumoru nadobličky literárne spomínané.

Kľúčové slová: adenomatoidný tumor – nadoblička – mezotelový pôvod – intraluminálne mostíky – imunohistochemia – elektrónová mikroskopia

Summary

Adenomatoid Tumor of the Right Adrenal Gland: A Case Report

Adenomatoid tumor of adrenal gland is a very rare primary tumor with favourable prognosis. The mesothelial origin of this tumor was confirmed by multiple studies of various authors. This origin was proven by immunohistochemical and ultrastructural examinations. In our case report, we present an interesting case of the adenomatoid tumor of the right adrenal gland in a 55-year-old woman. Our case is the second well-documented case of this tumor occurring in a female adult patient. We emphasize the presence of an intraluminal thread-like bridging strands, generally considered to be a characteristic histologic feature of this tumor, which have not yet been reported in literature in adenomatoid tumor located in adrenal glands.

Key words: adenomatoid tumor – adrenal gland – mesothelial origin – intraluminal bridges – immunohistochemistry – electron microscopy

Čes.-slov. Patol., 41, 2005, No. 3, p. 111–114

Adenomatoidný tumor nadobličky je veľmi vzácny primárny benígny tumor, prvýkrát popísaný Evansom a spol. v roku 1988. Doteraz bolo v odbornej literatúre publikovaných 14 prípadov tohto tumoru (1, 3, 5, 7, 8, 10). Väčšinou sa jednalo o kazuistiky, pochádzajúce od rozličných autorov (1, 3, 8, 10), súbor štyroch prípadov adenomatoidného tumoru popísali Raaf a spol. (7), recentná analytická zostava piatich prípadov bola popísaná Isotalom a spol. (5). Adenomatoidný tumor typicky postihuje ženský a mužský genitálny systém (1, 2, 4, 5, 7, 0). Extragenitálne adenomatoidné tumory boli popísané v mezenteriu, omente, peritoneu, retroperitoneu, srdci, pleure, perirenálnom tukovom väzive a v nadobličkách (1, 5, 7, 8, 10). Imunofenotyp a ultraštruktúrne črty tohto tumoru boli popísané v prácach niekoľkých citovaných autorov (1, 3, 5–8, 10).

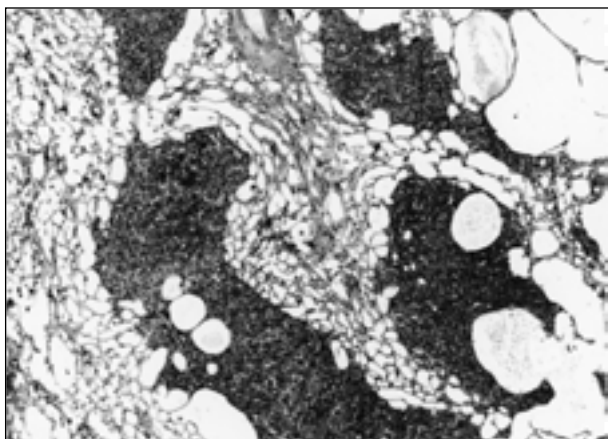
Vlastné pozorovanie

55-ročná žena s negatívnou rodinnou a osobnou anamnézou bola hospitalizovaná s dyspeptickými ťažkosťami, trvajúcimi niekoľko mesiacov. Sonografické vyšetrenie odhalilo tumor pravej nadobličky. Pacientka nemala klinické príznaky Cushingovho ani Connovho syndrómu. Počítačovou tomografiou sa zistila homogénna nádorová masa o priemere 7 cm, vychádzajúca z pravej nadobličky. Prídatné nádorové masy neboli v dutine brušnej zistené. Pacientka bola liečená v máji roku 1998 pravostrannou adrenalektómiou, s klinickou diagnózou „incidentalóm nadobličky“. Pacientka je sedem rokov po operácii bez lokálnych recidív, bez metastáz.

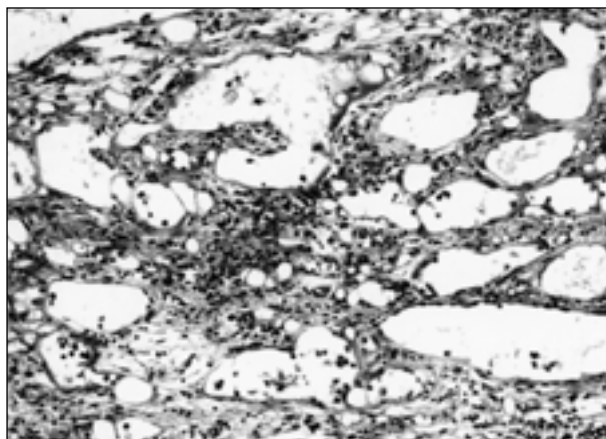
Makroskopicky išlo o dobre ohraničený solídny tumor pravej nadobličky o priemere 7 cm. Tumor bol na reze šedobelavej farby, tuhej konzistencie, bez ložiskových zmien. Exstirpovaný tumor bol dodaný fixovaný v 10% formalíne. Bol spracovaný rutinne, so zaliatím excízií do parafinových bločkov. Tumor bol spracovaný kompletne. Tkanivové rezy boli farbené HE, histochemicky striebrením na retikulárne vlákna podľa Gomoriho a reakciou s alcianovou modrou na kyslé mukopolysacharidy. Imunohistochemické vyšetrenia: protilátky proti cytokeratínom (monoklonálna, AE1/AE3, 1:100, Dako), epitelovému membránovému antigénu (monoklonálna, EMA, 1:100, Dako), vimentínu (monoklonálna, 1:200, Dako), FVIII-antigénu (monoklonálna, FVIII, 1:200, Dako) a kalretinínu (monoklonálna, 1:100, Dako), s použitím štandardného streptavidín-biotín-peroxidázového systému firmy Dako.

Histologické vyšetrenie tumoru odhalilo menšie reziduálne ostrovčeky pôvodného tkaniva nadobličkovej kôry, zavzaté do infiltratívne rastúceho tumoru (obr. 1). Tumor mal uniformný histolo-

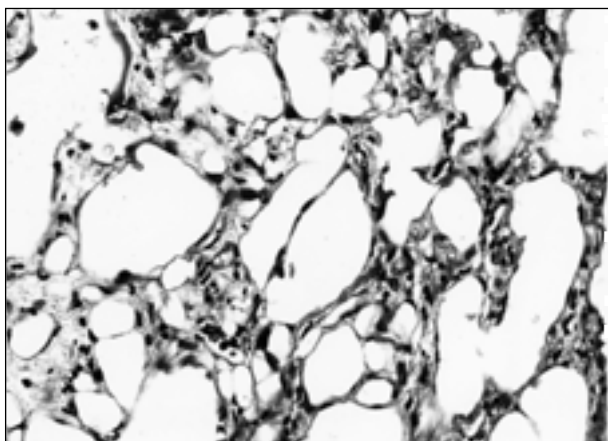
gický vzhľad, pozostával z tubulov, mikrocýst a sieťovitých priestorov, vystlatých kuboidnými epiteloidnými bunkami a plochými bunkami, pripomínajúcimi endotelové bunky, ktoré deskvovali do vyššie popísaných štruktúr (obr. 2). Izolované nepočetné bunky vzhľadu pečatného prsteňa sa nachádzali v histologickom obraze. Boli tu nájdené mnohopočetné typické intraluminálne mostíky, preklenujúce lumená sieťovitých priestorov a mikrocýst (obr. 3). Tieto mostíky sa vo všeobecnosti považujú za typický histologický znak adenomatoidného tumoru v recentnej práci Hessa a spol. (4). Tumor bol bez mitóz, bez nekroz a hemorágií. Tumor sa nešíril do periadrenálneho tukového väziva. Mnohopočetné lymfoidné agregáty, považované literárne za ďalší typický histologický znak tohto tumoru, sme tiež pozorovali (obr. 4). Histochemicky boli nádorové bunky negatívne pri farbení s alcianovou modrou. Imunohistochemicky boli nádorové bunky výrazne pozitívne s protilátkami proti cytokeratínom AE1/AE3, vimentínu a kalretinínu, reziduálne bunky kôry nadobličky boli slabo pozitívne s pro-



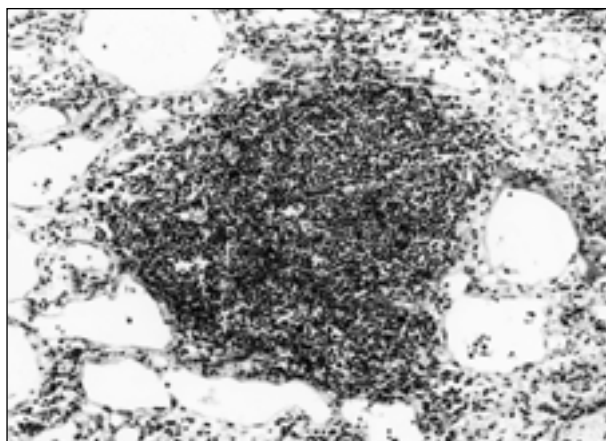
Obr. 1. Infiltratívne rastúci adenomatoidný tumor nadobličky so zavzatím do seba zvyškov nadobličkovej kôry (HE, 100-krát)



Obr. 2. Typické tubuly, mikrocysty a sieťovité priestory, vystlaté kuboidnými epiteloidnými bunkami a oploštenými bunkami, pripomínajúcimi endotelové bunky



Obr. 3. Intraluminálne mostíky - detail pri väčšom zväčšení (HE, 400-krát)



Obr. 4. Lymfoidný agregát ako typický histologický znak tohto nádoru (HE, 200-krát)

tilátkou proti EMA, endotelové bunky boli difúzne pozitívne s protilátkou proti FVIII-antigénu.

Vyšetrenie tumoru elektrónovým mikroskopom, tiež predoperačné vyšetrenie metódou tenkoihlovej aspiračnej cytológie, neboli robené. Stanovili sme diagnózu primárneho adenomatoidného tumoru pravej nadobličky.

Diskusia

Adenomatoidný tumor (AT) sa typicky vyskytuje v mužskom a ženskom genitálnom systéme, najmä v testis, epididymis, tunica albuginea testis, v prostate, ductus ejaculatorius, v ováriu, tube a v maternici (1, 2, 4, 5, 7, 10). Prípady extragenitálnych AT boli popísané v mezenteriu, veľkom omente, retroperitoneu, v peritoneálnom obsahu herniového vaku, v močovom mechúri, srdci, na pleure, v perirenálnom tuku a v nadobličkách (1, 5, 7, 8, 10).

Adenomatoidný tumor nadobličky (ATN) prvýkrát popísali Evans a spol. v roku 1988. Evansom popísaný prípad bol spochybnený v práci Simpsona, pretože histologickým vyšetrením sa tu jasne dokázalo oddelenie kôry nadobličky od vlastného nádoru tenkým väzivovým puzdrom (8). Dva nádory, pôvodne Plautom a spol. v roku 1962 nazvané lokálne invazívnymi lymfangiómami nadobličky, boli pravdepodobne tiež ATN (5). Medeiros a spol. v roku 1989 publikovali zaujímavý prípad cystického tumoru ľavej nadobličky, potvrdený nekropticky. Imunohistochemicky boli nádorové bunky pozitívne s protilátkami proti cytokeratínom. Jeden z autorov považoval tento tumor za ATN (6).

Literárne bolo doteraz popísaných 14 prípadov tohto tumoru, z toho trinásť sa našlo u mužov, iba jeden u ženy (1, 3, 5, 7, 8, 10). Osem ATN bolo lokalizovaných v ľavej nadobličke, päť v pravej nadobličke, jeden tumor nebol topograficky lokalizovaný (1, 3, 5, 7, 8, 10). Deväť ATN bolo potvrdených biopticky, päť nekropticky (1, 3, 5, 7, 8, 10). Klinicky sa ATN môže prejavovať syndrómom ektopickej produkcie ACTH, prípadne hypertenziou (8). Jedenkrát bol tento tumor popísaný u pacienta s AIDS (1).

Publikované prípady ATN boli makroskopicky väčšinou solídne (1, 3, 5, 7, 8, 10), tri popisované ATN rástli čiastočne alebo úplne cysticky (5, 7, 10). Ich histologická stavba bola vždy rovnaká ako u genitálnych AT (1, 3, 5, 7, 8, 10). Náš prípad mal identickú histologickú stavbu, vrátane sporadického výskytu buniek, vzhľadom pripomínajúcich prstencovité bunky (5, 7, 8, 10).

Unikátny prípad ATN, rastúceho papilárne, publikovali Glatz a spol. (3).

Imunohistochemicky boli publikované prípady ATN pozitívne s protilátkami proti rôznym cytokeratínom (1, 3, 5, 7, 8, 10), vimentínu (1, 5, 7, 10), proti kalretinínu (3, 5, 9) a trombomodulínu (3), nie proti S-100 proteínu (7), chromogranínu A (10), FVIII-antigénu (1, 7), CD-34 (1, 3, 5, 7), CD-15 a CD-31 (5), prípadne proti CEA (3, 5, 8).

Craig a spol. vo svojej práci, publikovanej v roku 1979, dokázali pomocou histológie a histochemie mezotelový pôvod extragenitálnych týchto tumorov na prípade AT mezentéria (2). Ďalšie novšie práce potom potvrdili identický imunofenotyp extragenitálnych AT v porovnaní s bežnými mezoteliómami (1, 3, 5, 7, 10). Predpokladá sa jeho pôvod z výstelky primitívnej celómovej dutiny, z pluripotentného mezenchýmu, z mezotelových inklúzií alebo z mezotelovej výstelky serózných blán (5). Mezotelový pôvod tohto nádoru bol potvrdený ultraštruktúrnym dôkazom kefkového lemu na luminálnom povrchu nádorových buniek, hojných dezmozómov a zväzkov tonofibril v ich cytoplazme (1, 3, 4, 8, 10).

Diferenciálne diagnosticky pripadajú do úvahy: adenóm a karcinóm nadobličky, myelolipóm, feochromocytóm, epitelioidný angiosarkóm, hemangióm, lymfangióm, malígný mezotelióm, benígny multicystický mezotelióm, tumor endodermálneho sínusu a metastázy karcinómu, obzvlášť z prstencovitých buniek (5, 7, 10). Cystický ATN je potrebné odlišiť od vzácnej „pravej“ nadobličkovej cysty (6, 7). Jeho správna diagnóza môže byť sťažená v prípadoch rozsiahlej infarzácie AT s fibroblastickou a myofibroblastickou proliferáciou, popisovanou u genitálnych aj extragenitálnych AT (9). Diagnóza musí brať do úvahy typickú histologickú stavbu a charakteristický imunofenotyp, ktoré môžu byť doplnené vyšetrením elektrónovým mikroskopom (3, 5, 7, 10).

V našom popisovanom prípade boli pozorované mnohopočetné intraluminálne mostíky. Tieto sú tvorené apozíciou predĺženej cytoplazmy dvoch susedných mezotelových buniek (4).

V citovanej literatúre sa doteraz nevyskytol malígný ATN (1, 3, 5, 7, 8, 10). Aj náš popisovaný prípad sa doteraz správa benígne.

Záverom, prezentujeme raritný prípad primárneho adenomatoidného tumoru pravej nadobličky u 55-ročnej ženy, verifikovaného histologicky a imunohistochemicky. Jedná sa o druhý známy prípad ATN u dospelaj ženy. Tiež zdôrazňujeme hojný výskyt intraluminálnych mostíkov, ktoré sú charakteristické pre AT všeobecne.

Imunohistochemická pozitivita tumoru s protilátkami proti cytokeratínom, vimentínu a kalretinínu podporila jeho mezotelový pôvod.

Podakovanie: Autori článku ďakujú MUDr. Petrovi Mukenšnáblovi, primárovi Šikloviho ústavu patológie LF UK a FN v Plzni, za zhotovenie kvalitných mikrofotografií.

Literatúra

1. Angeles-Angeles, A., Reyes, E., Muñoz-Fernandez, L., et al.: Adenomatoid tumor of the right-adrenal gland in a patient with AIDS. *Endocrine Pathology*, 8, 1997, s. 59–64. – 2. Craig, J. R., Hart, W. R.: Extragenital adenomatoid tumor: evidence for the mesothelial theory of origin. *Cancer*, 43, 1979, s. 1678–1681. – 3. Glatz, K., Wegmann, W.: Papillary adenomatoid tumor of the adrenal gland /letter/. *Histopathology*, 37, 2000, s. 376–382. – 4. Hess, O., Perez-Montiel, D. M., Cabrero I. A. et al.: Thread-like bridging strands: a morphologic feature present in all adenomatoid tu-

mors. *Ann. Diagn. Pathol.*, 7, 2003, s. 273–277. – 5. Isotalo, P. A., Keeney, G. L., Sebo, T. J., et al.: Adenomatoid tumor of the adrenal gland: a clinicopathologic study of five cases and review of the literature. *Am. J. Surg. Pathol.*, 27, 2003, s. 969–977. – 6. Medeiros, L. J., Weiss, L. M., Vickery jr., A. L.: Epithelial-lined /true/ cyst of an adrenal gland: a case report. *Hum. Pathol.*, 20, 1989, s. 491–492. – 7. Raaf, H. N., Grant, I. D., Santoscoy, C., et al.: Adenomatoid tumor of the adrenal gland: report of four new cases and a review of the literature. *Mod. Pathol.*, 1996, 9:1046–1051. – 8. Simpson, P. R.: Adenomatoid tumor of the adrenal gland. *Arch. Pathol. Lab. Med.*, 114, 1990, s. 725–727. – 9. Skinnider, B. F., Young, R. H.: Infarcted adenomatoid tumor. A report of five cases of a benign neoplasm that may cause diagnostic difficulty. *Am. J. Surg. Pathol.*, 28, 2004, s. 77–83. – 10. Travis, W. D., Lack, E. F., Azumi, N., et al.: Adenomatoid tumor of the adrenal gland with ultrastructural and immunohistochemical demonstration of a mesothelial origin. *Arch. Pathol. Med. Lab.*, 114, 1990, s. 722–724.

MUDr. Ján Koreň
Oddelenie patológie, FN sP F. D. Roosevelta
Námestie generála Svobodu 1
975 17 Banská Bystrica
Slovenská republika
Telefón: 00421-48-441-2432,
e-mail: koren.jan@stonline.sk



PROTEINY AKUTNÍ FÁZE

Fyziologie, diagnostika, klinika

Pavel Maruna

Proteiny akutní fáze jsou integrální součástí zánětlivé odpovědi. Během posledních 30 let si našly pevné místo ve vyšetřovacích algoritmech řady zánětlivých stavů. Přesto nebyla dosud problematika těchto proteinů v české (a podle autorových poznatků ani v cizojazyčné) literatuře komplexně zpracována formou monografie. Předložená práce má tak vyplnit mezeru, která se po vydání několika monografií věnovaných cytokinům (Klener: Cytokiny ve vnitřním lékařství, Grada, 1997, Gürlich a Maruna: Cytokiny v chirurgii, Galén, 2001) otvírá v této vysoce aktuální oblasti vědeckého výzkumu. Autor se snaží nejnovější fyziologické a patofyziologické poznatky o APP zasadit do kontextu dalších zánětlivých ukazatelů. Jeho cílem je nabídnout nejen vědcům, ale především klinickým lékařům komplexní přehled o těchto mediátorech a jejich diagnostickém využití v nejrůznějších lékařských

podoborech spolu s kritickým zhodnocením jejich výhod i omezení.

Kniha je v první řadě určena lékařům se zaměřením na intenzivní medicínu a těm odborníkům, kteří se často setkávají s diferenciální diagnostikou zánětlivých procesů (onkologové, hematologové). Věříme, že užitečné informace zde naleznou i další lékaři přicházející do kontaktu se zánětlivými stavy, jako jsou pediatři a chirurgové. S vědomím toho, že problematika proteinů akutní fáze v současné době hluboce zasahuje také do neurologie, kardiologie, pneumologie nebo gastroenterologie, jsme přesvědčeni, že naše kniha bude inspirativní a poučná i pro lékaře těchto a dalších oborů.

Vydal Maxdorf v roce 2004, edice Jessenius, formát A5, váz.

ISBN 80-85912-05-8, 288 str., cena 390 Kč

Objednávku můžete poslat na adresu:

Nakladatelské a tiskové středisko ČLS JEP, Sokolská 31, 120 26 Praha 2, fax: 224 266 226, e-mail: nts@cls.cz