

ОСОБЕННОСТИ ДИАГНОСТИКИ СОЛИДНО-ПСЕВДОПАПИЛЛЯРНОЙ ОПУХОЛИ ПОДЖЕЛУДОЧНОЙ ЖЕЛЕЗЫ: РОЛЬ КОНТРАСТНО-УСИЛЕННОГО УЛЬТРАЗВУКОВОГО ИССЛЕДОВАНИЯ И КОМПЬЮТЕРНОЙ ТОМОГРАФИИ С ТРЕХМЕРНЫМ МОДЕЛИРОВАНИЕМ

Зельтер П.М.¹, Терешина О.В.¹, Колсанов А.В.¹, Соловов Д.В.¹, Манукян А.А.²

Солидно-псевдопапиллярная опухоль (СПО) – это достаточно редкая эпителиальная опухоль поджелудочной железы с низким потенциалом злокачественности. Она составляет около 1% опухолей поджелудочной железы и около 3% опухолей кистозной структуры.

Цель. Представить клиническое наблюдение пациентки с верифицированной солидно-псевдопапиллярной опухолью поджелудочной железы.

Материалы и методы. Применен мультимодальный подход: использованы контраст-усиленное ультразвуковое исследование и компьютерная томография с контрастированием. Перед оперативным вмешательством проведены сегментация и трехмерное моделирование.

Результаты. Продемонстрированы преимущества комбинации контраст-усиленного ультразвукового исследования и компьютерной томографии с болюсным контрастированием. Трехмерное моделирование позволило определить оптимальную тактику лечения.

Ключевые слова: солидно-псевдопапиллярная опухоль, поджелудочная железа, контраст-усиленное УЗИ, КТ.

Контактный автор: Зельтер П. М., e-mail: pzelter@mail.ru

Для цитирования: Зельтер П.М., Терешина О.В., Колсанов А.В., Соловов Д.В., Манукян А.А. Особенности диагностики солидно-псевдопапиллярной опухоли поджелудочной железы: роль контрастно-усиленного ультразвукового исследования и компьютерной томографии с трехмерным моделированием. REJR 2019; 9(3):229-234. DOI:10.21569/2222-7415-2019-9-3-229-234.

Статья получена: 16.05.19

Статья принята: 11.07.19

FEATURES OF SOLID PSEUDOPAPILLARY PANCREATIC TUMOR DIAGNOSTICS: ROLE OF CEUS AND CT WITH 3D-MODELING

Zelter P.M.¹, Tereshina O.V.¹, Kolsanov A.V.¹, Solovov D.V.¹, Manukyan A.A.²

A solid pseudopapillary tumor (STR) is a rather rare epithelial pancreatic tumor with a low potential for malignancy. It makes up about 1% of pancreatic tumors and about 3% of cystic tumors.

Purpose. To present a clinical observation of a patient with a verified solid pseudopapillary pancreatic tumor.

Materials and methods. The multimodal approach was used: a combination of contrast-enhanced ultrasound and computed tomography. Before surgery, segmentation and three-dimensional modeling was performed.

Results. The advantages of the combination of contrast enhanced ultrasound and computer tomography are demonstrated. Three-dimensional modeling allowed to determine the optimal treatment tactics.

Keywords: solid-pseudopapillary tumor, pancreas, CEUS, CT.

1 - ФГБОУ ВО Самарский государственный медицинский университет.

г. Самара, Россия.

2 - ГБУЗ Самарский областной клинический онкологический диспансер.

г. Самара, Россия.

1 - Samara state medical university.

2 - Samara Regional Clinical Oncology

Dispensary.

Samara, Russia

Corresponding author: Zelter P.M., e-mail: pzelter@mail.ru

For citation: Zelter P.M., Tereshina O.V., Kolsanov A.V., Solovov D.V., Manukyan A.A. Features of solid pseudopapillary pancreatic tumor diagnostics: role of ceus and ct with 3d-modeling. REJR 2019; 9(3):229-234. DOI:10.21569/2222-7415-2019-9-3-229-234.

Received: 16.05.19

Accepted: 11.07.19

Солидно-псевдопапиллярная опухоль (СПО) – это достаточно редкая эпителиальная опухоль поджелудочной железы с низким потенциалом злокачественности. Опухоль была впервые описана патологоанатомом Вирджинией Франц в 1959 году, иногда ее называют «опухоль Франц». Она составляет около 1% опухолей поджелудочной железы и около 3% опухолей кистозной структуры. [1]. СПО достаточно медленно прогрессирует и имеет благоприятный прогноз, но при этом метастазы выявляют в 15% наблюдений [2].

Морфологически опухоль представлена мономорфными клетками с различной экспрессией эпителиальных, мезенхимальных и эндокринных маркеров с формированием солидных и псевдопапиллярных структур с частым развитием кистозно-геморрагических изменений [3].

Наиболее часто СПО диагностируется у молодых женщин неевропейских рас. Соотношение женщин и мужчин составляет 9,78 : 1, а средний возраст больных – 21,97 года. Пациенты с СПО обычно асимптоматичны, иногда они ощущают увеличивающееся образование в животе или боль разной степени выраженности. Живот обычно мягкий при пальпации, но компрессия внутренних органов может вызывать вторичные изменения, например, вздутие. Обычно изменений общего и биохимического анализа крови нет, отдельно указывается на отрицательный результат анализа на маркеры аденокарциномы (СА19–9, фетопротеин и т.д.). Чаще всего диагноз устанавливается случайно во время исследования органов брюшной полости по другим причинам [4]. СПО локализуется чаще в хвосте поджелудочной железы – до 41,7% [5]. Размер опухоли может варьировать, но обычно она имеет достаточно крупные размеры, в среднем 6,08 см [6].

Опухоли малых размеров обычно не имеют кистозных изменений. Более крупные опухоли имеют фиброзную псевдокапсулу, в различной степени присутствуют геморрагические и кистозно-некротические изменения [7]. В клетках СПО отмечается положительная реакция на виментин, нейрон-специфическую энолазу и α 1-антитрипсин. При иммуногистохимическом анализе часто обнаруживается специфическая экспрессия маркеров CD10, CD56 [8].

В данной публикации мы представляем историю болезни больной с верифицированной СПО, которая подтверждает сложность диагностики данной нозологии.

Пациентка Б., 1986 г.р., впервые обратилась за помощью в 2013 году с жалобами на постоянную пульсирующую боль в животе с иррадиацией в левую половину туловища. Считает себя больной в течение 2 лет, отмечает снижение веса на 5кг за последний год. Со слов больной проходила УЗИ брюшной полости с заключением: «Псевдотуморозный панкреатит».

10.07.13 г. было проведена компьютерная томография (КТ) органов брюшной полости с болюсным контрастированием. При описании поджелудочной железы отмечается: «поджелудочная железа обычного расположения. Контуры неровные, четкие. Структура паренхимы неомогенная – в головке железы, больше в области крючковидного отростка, выявлено образование с ровными четкими контурами размерами 46,5x41 мм. Структура образования преимущественно жидкостная, с высокоплотными включениями размерами до 31x27 мм, умеренно усиливающимися при введении контраста. Вирсунгов проток незначительно расширен дистальнее образования. Перипанкреатическая клетчатка не инфильтрирована. Заключение: КТ- картина псевдокисты головки поджелудочной железы с высокоплотным содержимым (рис. 1).»

09.09.13 г. под УЗ-контролем выполнена биопсия образования иглой 22G. Заключение: бесструктурное вещество, обильная смешанная флора, элементы клеточного распада. Был выставлен диагноз: Псевдокиста головки поджелудочной железы.

Пациентка была направлена под наблюдение хирурга в поликлинике. 22.07.2016 г. пациентка по собственной инициативе выполнила КТ органов брюшной полости без контрастирования, данные предыдущего КТ не были представлены. Сделано описание: «в области головки железы выявляется округлой формы образование размером до 61 мм в поперечнике, плотностью до 20 НУ. Остальные отделы железы без особенностей. Отмечается расширение Вирсунгова протока до 4 мм. Заключение: КТ- признаки псевдокисты головки поджелудочной железы» (рис. 2).

20.07.18 г. пациентке было проведено



Рис. 1 (Fig. 1)

Рис. 1. КТ органов брюшной полости с контрастированием (от 10.07.13 г).

Артериальная фаза, аксиальная проекция, режим average. Образование головки поджелудочной железы обозначено буквой Т (tumor).

Fig. 1. Contrast-enhanced CT, 10.07.13.

Arterial phase, axial projection, average mode. The neoplasm of the pancreatic head is indicated by the letter T.

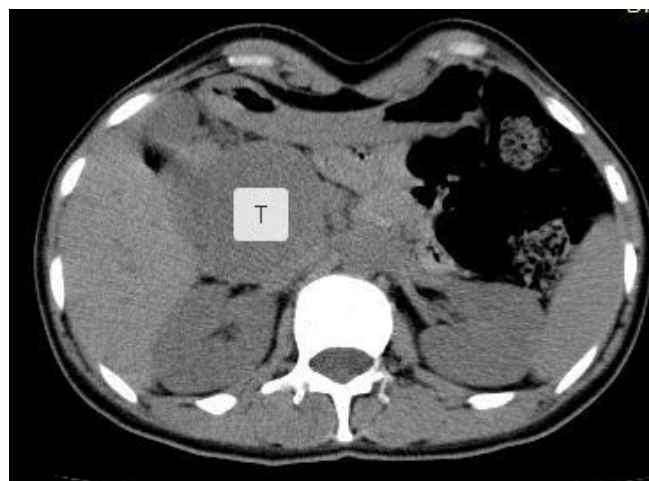


Рис. 2 (Fig. 2)

Рис. 2. КТ органов брюшной полости без контрастирования (от 22.07.16 г).

Образование головки поджелудочной железы обозначено буквой Т (tumor).

Fig. 2. MSCT of the left eustachian tube. Volunteer K., 32 y. Axial scans.

Neoplasm of the pancreatic head is indicated by the letter T.

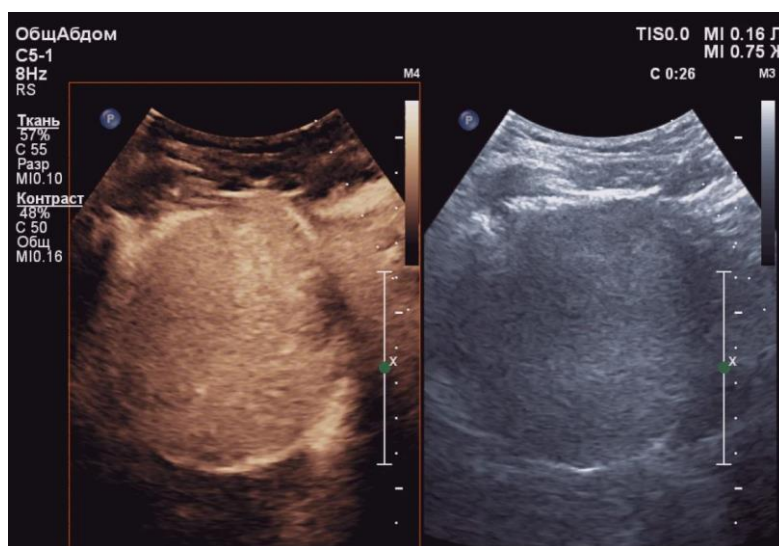


Рис. 3 (Fig. 3)

Рис. 3. Трансансабдоминальная сонограмма поджелудочной железы.

Справа: на нативном серо-шкальном изображении визуализируется образование округлой формы, гипоехогенное, с неоднородной структурой с гиперэхогенным ободком неравномерной толщины. Слева сонограмма с контрастным усилением. При контрастном усилении определяется гомогенное контрастное усиление образования в артериальную фазу с повышенным контрастным усилением стенок образования

Fig. 3. Trans-abdominal sonogram of the pancreas.

On the right: on the native gray-scale image a round-shaped, hypoechoic neoplasm with a heterogeneous structure with a hyperechoic rim of irregular thickness is visualized on the native gray-scale image. On the left: a homogeneous contrast enhancement of the neoplasm in the arterial phase is determined with an increased contrast enhancement of the formation walls.

трансабдоминальное УЗИ с контрастированием – введением 5 мл лифилизата серы гексафторида (Соновью, Вгассо). При ультразвуковом исследовании выявлено: в области головки поджелудочной железы определяется образование размерами 78x72x69 мм, оттесняющее сосуды брюшной полости. Образование округлой формы, гипоехогенное, имеет неоднородную структуру с гиперэхогенным ободком неравномерной толщины, с единичными потоковыми сигналами по цветовому Доплеровскому картированию, хаотично расположенными по периферии образования. При контрастировании определяется гомогенное контрастное усиление образования в артериальную фазу (на 16 секунде) с повышенным контрастным усилением стенок образования (рис. 3). Заключение: образование поджелудочной железы, больше данных за наличие солидно-псевдопапиллярной опухоли поджелудочной железы. Предположение об СПО было высказано в связи с соответствием характеристик изображений признакам, которые приводят в своей работе Jiang L. et al [9]: наличие гиперэхогенного ободка при серо-шкальном ультразвуковом исследовании и усиление в виде ободка по периферии образования в артериальной фазе.

27.07.2018 г. пациентке по направлению из поликлиники была проведена КТ с болюсным контрастированием. При описании: « в области головки определяется образование преимущественно солидного характера, гиповаскулярное по сравнению с паренхимой, с неомогенным накоплением контрастного вещества в артериальной и венозной фазах. Размеры образования 80x68x85 мм. Инвазии в окружающие сосуды не отмечается, определяется деформация верхней брыжеечной и воротной вен. Тело и хвост атрофированы, толщина до 15 мм. Вирсунгов проток расширен до 6 мм. Селезеночная вена расширена до 8 мм. Заключение: КТ-картина образования головки поджелудочной железы (признаки доброкачественного характера, вероятно, солидно-псевдопапиллярная опухоль)» (рис. 4).

Учитывая крупный размер и сложность топографии, была проведена сегментация полученных данных для предоперационного 3D-моделирования. Для этого данные в формате DICOM загружались в программу «Автоплан», разработанную в Институте инновационного развития СамГМУ [10]. В полуавтоматическом режиме производилась сегментация печени и поджелудочной железы, выделение образования проводилось с помощью плагина «инкрементальная сегментация», в автоматическом режиме отслеживались сосудистые структуры. Полученная полигональная модель показана на рисунке 5.

Пациентка была направлена на консуль-

тацию в Самарский областной клинический онкологический диспансер. Проведена повторная биопсия, цитологическое заключение: вероятно, нейроэндокринная опухоль. При иммуногистохимическом исследовании выявлено: в опухолевых клетках образования поджелудочной железы наблюдается экспрессия эпителиальных маркеров и CD 56.

02.10.2018 г. пациентке была проведена операция: панкреатодуоденальная резекция. При патологоанатомическом исследовании определялось: участок двенадцатиперстной кишки с прилежащей опухолью диаметром 10 см в капсуле, на разрезе крошащаяся ткань серо-коричневого цвета. Микроописание: Сольдно-псевдопапиллярная опухоль поджелудочной железы, инкапсулированная. Без инвазии в окружающие ткани, некрозов. С низкой митотической активностью.

Обсуждение.

Трансабдоминальное УЗИ является методом визуализации первой линии, используемым для диагностики заболеваний поджелудочной железы. Контрастное ультразвуковое исследование позволяет определять перфузию образования в режиме реального времени. Согласно методическим рекомендациям Европейской федерации обществ ультразвука в медицине и биологии (EFSUMB) по использованию контраст-усиленного ультразвука (CEUS) для внепеченочных поражений, этот метод полезен в дифференцировании васкуляризированных солидных структур от аваскулярных жидкостных и/или некротических компонентов поражения, в более точном определении размеров и границ образования, включая соотношение со смежными сосудами, а также помогает в выборе следующего метода визуализации [11]. В мета-анализе D'Onofrio M., включавшем 23 исследования, чувствительность и специфичность контрастного ультразвука для дифференцирования неопластических от не неопластических образований составила 95% и 72% [12]. К сожалению, в описанном случае именно дифференциальная диагностика опухолевой и неопухолевой патологии поджелудочной железы заняла без малого пять лет. Данный клинический случай показывает несколько признаков, нехарактерных для СПО: расположение в головке, а не в хвосте, наличие болей и особенности визуализации: при КТ даже при размере около 8 см отсутствовали некротические и кистозные изменения. Несмотря на доброкачественный характер опухоли, показана выраженная отрицательная динамика: за 5 лет диаметр увеличился в диаметре практически в 2 раза, появились признаки компрессии системы воротной вены. Проиллюстрирована важность выполнения контрастирования при КТ органов брюшной полости, информативность выполнения сегмента-



Рис. 4 (Fig. 4)

Рис. 4. КТ органов брюшной полости с контрастированием (от 27.07.18 г.). Венозная фаза, коронарная плоскость, режим average.

Селезеночная вена умеренно расширена до 8 мм (появились ранние признаки подпеченочной портальной гипертензии).

Fig. 4. CT with contrast enhancement, 27.07.18. Venous phase, coronar view, average mode.

The splenic vein is moderately dilated to 8 mm (early signs of subhepatic portal hypertension).

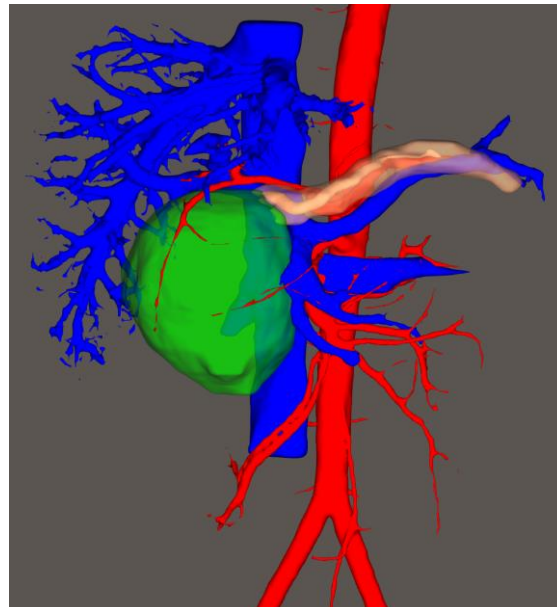


Рис. 5 (Fig. 5)

Рис. 5. Схема.

Полигональная модель опухоли, сосудов и поджелудочной железы с расширенным Вирсунговым протоком, показанными разными цветами.

Fig. 5. Scheme.

Polygonal model of a tumor, blood vessels and pancreas with an expanded Virungi duct, shown in different colors.

ции и предоперационного моделирования при опухолях поджелудочной железы. Показана сложность диагностики СПО: в описанном случае даже биопсия с цитологическим исследованием, выполненные в 2013 году, не ответили на вопрос об опухолевом характере процесса. Также данная статья – одна из первых публикаций на русском языке, где приводятся изоб-

ражения и семиотика СПО при контраст-усиленном УЗИ (CEUS).

Источник финансирования и конфликт интересов.

Авторы данной статьи подтвердили отсутствие финансовой поддержки исследования и конфликта интересов, о которых необходимо сообщить.

Список литературы:

1. Bhanot P., Nealon W.H., Walser E.M. et al. Clinical, imaging, and cytopathological features of solid pseudopapillary tumor of the pancreas: a clinicopathologic study of three cases and review of the literature. *Diagn. Cytopathol.* 2005; 33: 421–428.
2. Washington K. Solid pseudopapillary tumor of the pancreas: Challenges presented by an unusual pancreatic neoplasm. *Ann. Surg. Oncol.* 2002; 9: 3–4.
3. Кошель А.П., Клоков С.С., Попов К.М., Вторушин С.В., Завьялова М.В., Степанов И.В., Дибина Т.В., Миронова Е.Б., Дроздов Е.С. Солидно-псевдопапиллярная опухоль поджелудочной железы у молодой женщины: клиническое наблюдение. *Сибирский онкологический журнал.* 2016;15(3):102–109.
4. Coleman KM, Doherty MC, Bigler SA. Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas. *Radiographics.* 23 (6): 1644-8. doi:10.1148/rg.236035006

5. Allison L. Speer, Erik R. Barthel, Moneil M. Patel, Tracy C. Grikscheit. Solid pseudopapillary tumor of the pancreas: a single-institution 20-year series of pediatric patients. *Journal of Pediatric Surgery.* 2012 June;47(Issue 6):1217–1222. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2012.03.026.
6. Papavramidis T., Papavramidis S. Solid pseudopapillary tumors of the pancreas: review of 718 patients reported in English literature. *J. Am. Coll. Surg.* 2005. V. 200. P. 965–972
7. Rebhandl W., Felderbauer F.X., Puig S. et al. Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas (Frantz tumor) in children: report of four cases and review of the literature. *J. Surg. Oncol.* 2001. V. 20. P. 221–224
8. Notohara K., Hamazaki S., Tsukayama C. et al. Solidpseudopapillary tumor of the pancreas. Immunohistochemical localization of neuroendocrine markers and CD10. *Am. J. Surg. Pathol.*

2000. V. 24. P. 1361–1371.

9. Jiang L., Cui L., Wang J., Chen W., Miao L., Jia J. Solid pseudopapillary tumors of the pancreas: Findings from routine screening sonographic examination and the value of contrast-enhanced ultrasound. *J. Clin. Ultrasound*. 2015 Jun;43(5):277-82. doi: 10.1002/jcu.22259.

10. Колсанов А. В., Манукян А. А., Зельтер П. М., Чаплыгин С. С., Капишников А. В. Виртуальное моделирование операции на печени на основе данных компьютерной томографии. *Анналы хирургической гепатологии*. 2016; 4 (21): 16-22.

References:

1. Bhanot P., Nealon W.H., Walser E.M. et al. Clinical, imaging, and cytopathological features of the pseudopapillary tumor of the pancreas: a diagnosis of the study pathology and a review of the literature. *Diagn. Cytopathol*. 2005; 33: 421-428.

2. Washington K. Solid pseudopapillary tumor of the pancreas: Challenges presented by an unusual pancreatic neoplasm. *Ann. Surg. Oncol*. 2002; 9: 3-4.

3. Koshel A.P., Klokov S.S., Popov K.M., Vtorushin S.V., Zavyalova M.V., Stepanov I.V., Dibina T.V., Mironova E. B., Drozdov E.S. Solid pseudopapillary tumor of the pancreas in a young woman: a clinical case. *Siberian Oncology Journal*. 2016; 15 (3): 102-109 (in Russian).

4. Coleman KM, Doherty MC, Bigler SA. Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas. *Radiographics*. 23 (6): 1644-8. doi: 10.1148 / rg.236035006

5. Allison L. Speer, Erik R. Barthel, Moneil M. Patel, Tracy C. Grikscheit. Solid pseudopapillary tumor of the pancreas: a single institution 20-year series of pediatric patients. *Journal of Pediatric Surgery*. 2012 June; 47 (Issue 6): 1217–1222. doi: 10.1016 / j.jpedsurg.2012.03.026.

6. Papavramidis T., Papavramidis S. Solid pseudopapillary tumors of the pancreas: review of 718 patients reported in English literature. *J. Am. Coll. Surg*. 2005. V. 200. R. 965–972

11. Sidhu P.S. *The EFSUMB Guidelines and Recommendations for the Clinical Practice of Contrast-Enhanced Ultrasound (CEUS) in Non-Hepatic Applications: Update 2017*. *Ultraschall in Med* 2018; 39: 154–180

12. D'Onofrio M, Biagioli E, Gerardi C, Canestrini S, Rulli E, Crosara S, et al. Diagnostic performance of contrast enhanced ultrasound (CEUS) and contrast enhanced endoscopic ultrasound (ECEUS) for the differentiation of pancreatic lesions: a systematic review and meta analysis. *Ultraschall Med* 2014; 35(6):515-21. doi: 10.1055/s00341385068.

7. Rebhandl W., Felderbauer F.X., Puig S. et al. Report on four cases and review of the literature in children. *J. Surg. Oncol*. 2001. V. 20. R. 221–224

8. Notohara K., Hamazaki S., Tsukayama C. et al. Solidpseudopapillary tumor of the pancreas. Immunohistochemical localization of neuroendocrine markers and CD10. *Am. J. Surg. Pathol*. 2000. V. 24. R. 1361–1371.

9. Jiang, L., Cui, L., Wang, J., Chen, W., Miao, L., Jia, J. Solid papudate tumors of the pancreas: Findings from contrast-enhanced ultrasound. *J. Clin. Ultrasound*. 2015 Jun; 43 (5): 277-82. doi: 10.1002 / jcu.22259.

10. Kolsanov A.V., Manukyan A.A., Zelter P.M., Chaplygin S.S., Kapishnikov A.V. Virtual simulation of a liver surgery based on computed tomography data. *Annals of surgical hepatology*. 2016;4 (21): 16-22 (in Russian).

11. Sidhu P.S. *Contrast-Enhanced Ultrasound (CEUS): Update 2017*. *Ultraschall in Med* 2018; 39: 154–180

12. D'Onofrio M, Biagioli E, Gerardi C, Canestrini S, Rulli E, Crosara S, et al. Diagnostic performance of the ultrasound (ECUS) and the contrast of the ultrasound (ECUS): a systematic review and meta-analysis. *Ultraschall Med* 2014; 35 (6): 515-21. doi: 10.1055 / s0034138506.