# ЭНДОСКОПИЧЕСКАЯ ДИАГНОСТИКА МИОФИБРОБЛАСТИЧЕСКОЙ ОПУХОЛИ ТЕРМИНАЛЬНОГО ОТДЕЛА ХОЛЕДОХА У 35-ЛЕТНЕГО БОЛЬНОГО*

Годжелло Э. А., Хрусталева М. В., Булганина Н. А., Дехтяр М. А.
Федеральное государственное бюджетное научное учреждение «Российский научный центр хирургии имени академика Б. В. Петровского» (Москва, Россия)

# ENDOSCOPIC DIAGNOSIS OF THE DISTAL COMMON BILE DUCT MYOFIBROBLASTIC TUMOR IN THE35-YEAR-OLD PATIENT*

Godzhello E. A., Khrustaleva M. V., Bulganina N. A., Dekhtyar M. A.
The Federal State Budgetary Scientific Institution «Petrovsky National Research Center of Surgery» (Moscow, Russia)

**Для цитирования**: Годжелло Э. А., Хрусталева М. В., Булганина Н. А., Дехтяр М. А. Эндоскопическая диагностика миофибробластической опухоли терминального отдела холедоха у 35-летнего больного. Экспериментальная и клиническая гастроэнтерология. 2018;152(4): 101–106.

**For citation**: Godzhello E. A., Khrustaleva M. V., Bulganina N. A., Dekhtyar M. A. Endoscopic diagnosis of the distal common bile duct myofibroblastic tumor in the35-year-old patient. Experimental and Clinical Gastroenterology. 2018;152(4): 101–106.

**Годжелло Элина Алексеевна** — д.м.н., главный научный сотрудник эндоскопического отделения
**Хрусталева Марина Валерьевна** — д.м.н., руководитель эндоскопического отделения
**Булганина Наталья Анатольевна** — к.м.н., научный сотрудник эндоскопического отделения
**Дехтяр Марина Александровна** — к.м.н., старший научный сотрудник эндоскопического отделения
**Godzhello E. A.**— Department of Endoscopy, Chief Scientific Employee, MD, PhD
**Khrustaleva M. V.**— Department of Endoscopy, Head of the Department, MD, PhD
**Bulganina N. A.**— Department of Endoscopy, Scientific Employee, PhD
**Dekhtyar M. A.**— Department of Endoscopy, Senior Scientific Employee, PhD

**Булганина Наталья Анатольевна**
Bulganina Nataliya A.
kuzma73@ya.ru

## Резюме

**Цель исследования**: Воспалительная миофибробластическая опухоль (ВМО) встречается редко и обладает промежуточной злокачественностью в плане локальной инвазивности. Различают легочную и более редкую внелегочную формы. Среди внелегочных локализаций билиарное поражение встречается в единичных случаях. В связи с редкостью заболевания приводим собственное клиническое наблюдение.

У пациента 35 лет с помощью различных инструментальных методов было выявлено образование в дистальном отделе холедоха, которое манифестировало безболевой формой желтухи. Наличие тканевой массы в дистальном отделе холедоха часто связано со злокачественными новообразованиями. Одними из информативных инструментальных методик оказались эндосонография и эндоскопические ретроградные лечебно-диагностические вмешательства на внепеченочных желчных протоках с забором биопсии. В связи с редкостью заболевания и настороженностью относительно злокачественной природы образования в терминальном отделе холедоха пациенту была выполнена хирургическая операция. Данные гистологического и иммуногистохимического исследований подтвердили наличие воспалительной миофибробластической опухоли.

**Ключевые слова**: воспалительная миофибробластическая опухоль, эндоскопическая ультрасонография, холедох, ЭРХПГ, ЭПСТ

* **Иллюстрации к статье – на цветной вклейке в журнал.**

* Illustrations to the article are on the colored inset of the Journal.

## Summary

**Aim**: The inflammatory myofibroblastic tumor (IMT) is rare and has an intermediate malignancy in terms of local invasiveness. There are pulmonary and extrapulmonary forms that are rare to be come across. Among extrapulmonary forms, biliary lesion occurs in isolated instances. Due to the rarity of the disease, we provide our own clinical observation.

In a 35-year-old patient various instrumental methods showed the formation in the distal common bile duct (CBD), which manifested the painless form of jaundice. The presence of tissue mass in the distal CBD is often associated with malignant neoplasms. One of the informative instrumental techniques turned out to be endosonography and endoscopic retrograde therapeutic and diagnostic interventions on extrahepatic bile ducts with biopsy sampling. Due to the rarity of the disease and the precaution regarding the malignant origin of the neoplasm in the distal CBD, the patient underwent a surgery. Histological and immunohistochemical data confirmed the inflammatory myofibroblastic tumor.

**Key words**: inflammatory myofibroblastic tumor, endoscopic ultrasonography, common bile duct (CBD), ERCP, EPST

## Введение

Воспалительная миофибробластическая опухоль (ВМО) относится к редким новообразованиям, в основном встречается в детском и молодом возрасте. Наиболее часто поражаются легкие, а среди внелегочных локализаций около 43% составляют брыжейка и сальник. Иногда опухоль расположена в мягких тканях, коже, средостении, желудочно-кишечном тракте, поджелудочной железе, костях, центральной нервной системе, селезенке и лимфатических узлах. Немногочисленные описания воспалительных миофибробластических опухолей пищеварительной системы касаются пищевода, тонкой, толстой и прямой кишок, аппендикса, дивертикула Меккеля, поджелудочной железы, печени. Сообщений же об этом типе опухоли, локализованной во внепеченочных желчных протоках, в литературе крайне мало [1, 2, 3].

Клиническая картина заболевания во многом зависит от локализации опухоли. Так, ВМО легкого может сопровождаться болями в грудной клетке и одышкой. Опухоли, расположенные в брюшной полости, могут стать причиной кишечной непроходимости. При наличии новообразования в печени пациенты, как правило, предъявляют жалобы на боли в верхне-правых отделах живота и желтуху. У ряда больных отмечаются системные проявления заболевания, такие, как лихорадка, слабость, потеря аппетита, снижение массы тела.

Ткань опухоли представлена преимущественно веретеновидными миофибробластами и воспалительными клетками (плазматическими, лимфоцитами и эозинофильными гранулоцитами). Для обозначения данного новообразования используется множество терминов: воспалительная псевдоопухоль, воспалительная фибросаркома, плазмоклеточная гранулема, плазмоклеточная псевдоопухоль, воспалительный миофибробластический пролиферат, сальниково-брыжеечная миксоидная гамартома, ксантоматозная псевдоопухоль, миофибробластома, смешанноклеточная псевдоопухоль, фибромиксоидная лимфоплазмогистиоцитома [1].

ВМО, выделенная из довольно разнородной группы воспалительных псевдоопухолей как самостоятельная нозологическая единица, является новообразованием с промежуточным биологическим потенциалом, выраженным воспалительным компонентом и характерными генетическими изменениями [4].

В связи с редкостью заболевания приводим собственное клиническое наблюдение.

## Материалы и методы

Пациент 35 лет поступил в «РНЦХ им. акад. Б. В. Петровского» с диагнозом: стриктура дистального отдела холедоха, наружный желчный свищ. Активные жалобы связаны с наличием наружного желчного свища. Из анамнеза: за полгода до обращения на фоне полного благополучия пациент отметил появление кожного зуда, пожелтение кожи и склер. При МРТ были выявлены признаки билиарной гипертензии, сдавление холедоха извне, вероятно, объемным образованием головки поджелудочной железы. По месту жительства были выполнены ЭРХПГ, ЭПСТ и стентирование холедоха, но в связи с неэффективностью эндоскопических вмешательств через сутки была выполнена операция – лапаротомия, холедохотомия, удаление стента, дренирование холедоха по Керу. Желтуха разрешилась. Через 1 месяц при ПЭТ-КТ выявлено накопление РФП по ходу общего печеночного протока, холедоха, поджелудочной железы, перипанкреатической клетчатки, кистозного образования по верхнему краю тела поджелудочной железы, метаболически активный лимфатический узел по ходу общей печеночной артерии. Еще через месяц при стационарном лечении по месту жительства при фистулографии выявлен дефект наполнения в дистальном отделе холедоха протяженностью 7 мм, при этом контрастное вещество частично эвакуировалось в двенадцатиперстную кишку. Было предположено наличие «полипа холедоха». Для дальнейшего лечения пациент был направлен в «РНЦХ им. акад. Б. В. Петровского».

## Результаты

В «РНЦХ им. акад. Б. В. Петровского» пациенту выполнено комплексное обследование, так как наличие тканевого компонента в дистальном отделе холедоха, безболевая форма желтухи и молодой возраст не позволяли исключить злокачественное новообразование холедоха – холангиокарциному.

По данным УЗИ гепатикохоледох расширен до 13 мм, в дистальном отделе по наружной стенке определяется тканевое образование диаметром до 10 мм. По данным фистулографии холедох расширен до 18 мм, в дистальном отделе определяется дефект наполнения диаметром 10 мм. Контрастное вещество частично попадает в двенадцатиперстную кишку (рис. 1).

По данным МРТ (рис. 2а, б), МР-холангиографии (рис. 2в) диаметр гепатикохоледоха составляет 10–11 мм, в дистальной части просвет обтурирован за счет узлового образования диаметром 12–13 мм, протяженностью до 20 мм, равномерно накапливающего контрастное вещество. Определяются единичные лимфоузлы в воротах печени (до 10 мм). В 7 и 4а сегментах печени определяются мелкие образования до 6 мм, кольцевидно накапливающие контрастное вещество.

В эндоскопическом отделении «РНЦХ им. акад. Б. В. Петровского» выполнена эндосонография (ЭУС). По данным ЭУС в области чревного ствола визуализируются множественные гипоэхогенные

лимфоузлы размером до 7 мм по длинной оси (рис. 3е), часть из них сливаются в конгломераты размером до 15–17 мм. Паренхима поджелудочной железы неоднородная, дольчатая, вирсунгов проток диаметром от 1,8 до 2,6 мм (соответствует нормальным величинам). В теле железы ближе к перешейку визуализируется гипоэхогенная структура размером 19 мм, в центре которой имеется гиперэхогенный очаг округлой формы размером до 10 мм – возможно, кистозное образование с густым содержимым. В дистальной части холедоха определяется гипоэхогенное образование (рис. 3а, б), состоящее, по-видимому, из двух порций размером 1х1,3 см и 1х0,6 см (рис. 3г, д). Содержимое в дистальном отделе холедоха неоднородное, в просвете лоцируются бранши дренажа Кера (рис. 3в). Холедох расширен до 18 мм. Заключение: дилатация холедоха, новообразование дистального отдела холедоха, очаговое образование тела поджелудочной железы, возможно, кистозного характера, лимфаденопатия.

Известно, что по ультразвуковым признакам невозможно точно установить злокачественную или доброкачественную природу образования. Сразу после эндосонографии была выполнена ЭРХПГ. В устье холедоха определялось включение белого цвета, подозрительное на густое гноевидное содержимое (рис. 4а), которое при канюляции оказалось фиксированным (рис. 4б). При контрастировании в дистальном отделе холедоха выявлено короткое сужение, после баллонной дилатации которого визуализировано мягкотканное образование белесоватого цвета, пролабирующее через папиллотомическое отверстие в просвет двенадцатиперстной кишки (рис. 4в, г). При биопсии ткани очень плотные, за счет чего биопсийные щипцы соскальзывали с поверхности образования.

По результатам гистологического исследования биопсийного материала роста опухоли не было обнаружено, определялись фрагменты рубцово-грануляционной ткани с периваскулярной лимфоплазмоцитарной инфильтрацией и примесью лейкоцитов (рис. 5). Заключение – грануляционная ткань, воспаление.

Лабораторные данные уровня онкомаркеров: СА 19–9 – менее 1,4 ед/мл (норма до 37 ед/мл); РЭА – 0,74 нг/мл (норма 0–3 нг/мл).

После обсуждения на онкосовете «РНЦХ им. акад. Б. В. Петровского» предполагаемый объем хирургического лечения предусматривал два варианта: резекция дистальной части холедоха с наложением гепатикоеюноанастомоза на отключенной по Ру петле со срочным гистологическим исследованием либо панкреатодуоденальная резекция, если полученные данные будут свидетельствовать о злокачественной природе образования.

Срочное гистологическое исследование удаленного во время операции парахоледохеального лимфатического узла не выявило опухолевого роста. При осмотре общего печеночного протока по передней стенке определялись полипообразные разрастания ткани до области конфлюэнса, что соответствовало данным ПЭТ-КТ. Выполнена резекция общего печеночного протока до зоны конфлюэнса. Результат срочного гистологического исследования – грануляционная ткань с воспалительной инфильтрацией, опухолевого роста не выявлено. При осмотре в дистальной части холедоха по задней стенке определялось образование на широком основании, плотной консистенции, с ровной поверхностью, состоящее их двух частей 18х13 мм и 10х7 мм, распространяющееся до устья БСДК (рис. 6). Выполнена резекция дистального отдела холедоха вместе с новообразованием до устья БСДК. По результатам срочного гистологического исследования выявлена доброкачественная опухоль типа миксоматозной фибромы или липомы. Учитывая отсутствие злокачественного роста при срочном гистологическом исследовании, было принято решение об ограничении объема операции резекцией гепатикохоледоха с наложением гепатикоеюноанастомоза на отключенной по Ру петле, холецистэктомией.

Макроскопическая картина операционного материала: мягкий узел, покрытый тонкой полупрозрачной оболочкой 20х15 мм. На разрезе бледно-розовый с белесым участком 5 мм. При срочном гистологическом исследовании обнаружено рыхлое мягкотканное образование с редко расположенными сосудами, по ходу которых имеется воспалительная инфильтрация. Было предположено, что новообразование более всего соответствует доброкачественной опухоли – миксоматозной фиброме или липоме.

По данным планового морфологического исследования операционного материала метастазов опухоли в лимфоузлах обнаружено не было. В срезе холедоха обнаружена картина хронического воспаления с фиброзными изменениями стенки (рис. 7а-г). Доброкачественное образование дистального отдела холедоха, состоящее из фиброзной и грануляционной ткани, с очаговой пролиферацией фибробластов, очаговой выраженной лимфоплазмоцитарной инфильтрацией, миксоматозом стромы. По данным гистологического исследования предположен диагноз: миксоидная фиброма? воспалительная миофибробластическая опухоль?

Для уточнения диагноза проведено иммуногистохимическое исследование (рис. 8а, б) и подтвержден иммунофенотип воспалительной миофибробластической опухоли ICD-0 code 8825/1.

Для еще более точной верификации диагноза гистоморфологами был рекомендован пересмотр гистологических препаратов от 2016 года.

## Обсуждение

Воспалительная миофибробластическая опухоль – групповое обозначение довольно редких опухолей, поражающее лиц обоего пола и разного возраста. Различают легочную и внелегочную форму. Среди интраабдоминальных локализаций ВМО чаще всего выявляют в печени, затем в желудке, кишечнике

и селезенке [5]. ВМО внелегочной локализации – в печени – была впервые описана G. Pack и H. Baker в 1953 г. [6].

Макроскопически представляет собой четко отграниченный, плотноватый, белесовато-серый или пестрый узел диаметром от 2 до 20 см. Может быть многоузловой. Опухоль склонна к рецидивам [7]. Описаны случаи малигнизации – трансформации в саркому [3, 8, 9] и крайне редкого метастазирования [3, 10]. Гистологически ВМО состоят из пучков веретеновидных миофибробластов и очаговых пролифератов полиморфных воспалительных клеток (плазматических, лимфоцитов, макрофагов и эозинофильных гранулоцитов) [11], иммунопозитивных к виментину, к гладкомышечному актину (SMA), очагово – к анапластической лимфомной киназе (ALK) и десмину; иммунонегативных к панцитокератину, S-100, CD21, CD34, CD35, CD68, CD117, Ki 67, p53 [8, 12], с лимфоплазмоцитарной инфильтрацией в заинтересованных лимфатических узлах. Вероятность рецидива и метастазов ВМО прямо коррелирует с размером опухоли и ALK-реактивностью [3, 13]. Иммуногистохимическая реакция с анапластической лимфомной киназой (ALK) относительно специфична для ВМО среди спектра фибробласто-миофибробластических опухолей [14]. Одно из исследований показало, что ALK-положительные ВМО были диагностированы у пациентов более молодого возраста и они имели лучший прогноз. ALK-негативные ВМО связаны с более пожилым возрастом, смертью из-за местнораспространенного роста новообразования и наличием метастазов [3, 15].

Этиология ВМО до сих пор остается неизвестной, а патогенез спорным [1, 3, 9]. В настоящее время наиболее широко принятой является теория, что воспалительная миофибробластическая опухоль связана с аутоиммунным процессом и инфекционными заболеваниями [16, 17]. Обсуждается связь воспалительной миофибробластической опухоли с лимфоплазматическим склерозирующим панкреатитом и аутоиммунным панкреатитом [18]. Полагают, что ВМО билиопанкреатической зоны, особенно в дистальном отделе желчного протока, обычно связаны с аутоиммунным панкреатитом, который является начальным процессом активации, а фибробластические клетки обоих очагов индуцированы в одном месте воспалительного и фиброзного процесса, но с различными гистологическими проявлениями [16]. В связи с этим, возможно, в будущем IgG4 может быть использован не только в качестве серологического маркера аутоиммунного панкреатита, но и воспалительной миофибробластической опухоли, а также для динамической оценки эффективности лечения у пациентов, получающих гормональную терапию. Это особенно важно в случаях рецидивов ВМО, тем более, что рецидив может иметь другую локализацию [7].

В поддержку этой гипотезы в нашем клиническом наблюдении следует отметить, что как и при любом аутоиммунном заболевании, патологический процесс, вероятно, охватывал более обширную анатомическую область, а не только изолированно терминальный отдел холедоха. Свидетельством этого при ретроспективном анализе могут быть данные ПЭТ-КТ о накоплении РФП по ходу общего печеночного протока, холедоха, поджелудочной железы, перипанкреатической клетчатки, кистозного образования по верхнему краю тела поджелудочной железы, метаболически активный лимфатический узел по ходу общей печеночной артерии. Как было отмечено выше, во время операции по передней стенке общего печеночного протока определялись полипообразные разрастания ткани до области конфлюэнса, а гистологическое исследование выявило наличие только грануляционной ткани с воспалительной инфильтрацией. В проспективном плане было бы интересно определить уровень IgG4 у данного пациента.

ВМО могут обладать быстрым ростом и локальной инвазивностью, выглядят как хорошо отграниченные массы, вытесняющие окружающие анатомические структуры, что приводит к дисфункции органа, возникающей из-за констриктивного роста вокруг больших сосудов в средостении или вокруг протоковых структур [18]. За исключением легочной локализации, эти новообразования довольно редки и в литературе встречаются только как описания клинических наблюдений различных локализаций в пищеварительном тракте. В панкреатобилиарной зоне это чаще всего ВМО поджелудочной железы [19, 20]. Поражение внепеченочных желчных протоков встречается, вероятно, еще реже [21]. В литературе нами найдены лишь единичные клинические наблюдения [16, 22, 23]. Как правило, все они манифестируют механической безболевой желтухой, а возможности клинико-инструментальных диагностических методов на дооперационном этапе недостаточны для верификации воспалительных миофибробластических опухолей. Это имеет важное клиническое значение, поскольку из-за различных вариантов характеристик и широкой локализации они часто имитируют злокачественные новообразования, такие как саркомы, лимфомы или метастазы. Например, по данным литературы, клинические проявления и ультразвуковые характеристики ВМО печени аналогичны проявлениям опухоли Клацкина – визуализируется область инфильтрации перипортальных тканей [24, 25]. Клинические проявления ВМО желчного протока неотличимы от таковых при холангиокарциноме. Радиологические исследования (МРТ) не могут обеспечить дифференциацию между ВМО и холангиокарциномой или лимфомой из-за значительного сходства [26].

В приводимом нами наблюдении данные всех клинико-инструментальных методов дооперационной диагностики также не были однозначными. Наличие тканевой массы в дистальном отделе холедоха настораживает, поскольку может быть обусловлено злокачественным новообразованием, в частности, холангиокарциномой. В связи с этим мы применили все возможные эндоскопические диагностические и лечебные методы, чтобы выяснить причину сужения дистального отдела холедоха и природу новообразования. Однако результат эндоскопической биопсии не всегда может быть убедительным. Следует отметить, что лишь при эндосонографии было обнаружено, что образование состоит из двух порций, что и было подтверждено во время операции. Хирургическое

лечение в данном случае является методом выбора, а окончательный диагноз основан на результатах срочного и планового гистологического исследования операционного материала и подтвержден иммуногистохимическими методами.

Хирургическое лечение в настоящее время является основным. Имеется одно опубликованное наблюдение успешного лечения воспалительной миофибробластической опухоли, локализованной в ампуле фатерова соска, методом эндоскопической папиллэктомии с использованием ЭУС. В этом случае образование было расположено в просвете ампулы без интрадуктальной инвазии [23]. В литературе имеются сообщения о медикаментозном лечении ВМО – химиотерапии, антителами к α-ФНО, нестероидными противовоспалительными препаратами или кортикостероидами, а также о лучевой терапии [3].

ВМО следует дифференцировать с нодозным фасциитом, серозитами, выбухающей дерматофибромой, злокачественной фиброзной гистиоцитомой, различными саркомами, лимфомой, болезнью Розаи-Дорфмана и плацмоцитомой. Такие заболевания как забрюшинный фиброз, склерозирующий медиастинит, склерозирующий холангит, орбитальная псевдоопухоль и тиреоидит Риделя, по-видимому, каким-то образом связаны между собой, так как опубликованы данные о пациентах, страдающих двумя или более подобными заболеваниями, а также описаны семейные случаи [18].

В связи с этими особенностями, связанными с ВМО, очень важное значение приобретает вопрос этиологии и патогенеза, так как пока они не будут более четко определены, дальнейшие вопросы диагностики, терапии и прогноза очень сложны. ВМО в настоящее время рассматривается как локально рекуррентное, редко метастазирующее новообразование промежуточной злокачественности [3]. Существует мнение о его биологическом потенциале, как о предраковом заболевании [27].

## Заключение

Воспалительная миофибробластическая опухоль билиарной локализации чрезвычайно редка и может быть одной из причин обструктивной желтухи. Возможности клинико-инструментальных диагностических методов на дооперационном этапе в настоящее время недостаточны для ее верификации. ВМО обладают пограничным или неопределенным поведением и имитируют злокачественные новообразования, поэтому клиницисты должны помнить об агрессивности этого заболевания и о возможности рецидива. В связи с неизвестной этиологией и патогенезом ВМО необходимы дальнейшие исследования для уточнения характеристик этого заболевания, методов его диагностики и лечения.

## Литература | Reference


1. *Дубова Е.А., Павлов К.А., Франк Г.А., Щеголев А.И.* Воспалительная миофибробластическая опухоль печени. Арх патол 2009; 3: 25–28.
   *Dubova E.A., Pavlov K.A., Frank G.A., Shhegolev A.I.* Vospalitel'naya miofibroblasticheskaya opukhol' pecheni [Inflammatorymiofibroblasticliver tumor]. Arkh patol 2009; 3:25–28. (In Russian)
2. *Франк Г.А.* Проблемы морфологической классификации и диагностики опухолей мягких тканей. Практическая онкология 2004; 5: 4: 231–236.
   *Frank G.A.* Problemy morfologicheskoj klassifikatsii i diagnostiki opukholej myagkikh tkanej [Problems of morphological classification and diagnosis of soft tissue tumors]. Prakticheskaya onkologiya 2004; 5: 4: 231–236. (In Russian)
3. *Coffin C.M., Hornick J.L., Fletcher C.D.* Inflammatory myofibroblastic tumor: comparison of clinicopathologic, histologic, and immunohistochemical features including ALK expression in atypical and aggressive cases. Am J Surg Pathol 2007; 31: 4: 509–520.
4. *Попов С.Д., Ильина Н.А.* Воспалительная миофибробластическая опухоль легкого: вопросы дифференциальной диагностики. Вестник рентгенологии и радиологии № 6, 2013 С. 038–043
   *Popov S.D., Il'ina N.A.* Inflammatory myofibroblasts tumor of the lung: Problems in differential diagnosis. Journal of radiology and nuclear medicine. 2013; 6: 38–43
5. *Patnana M., Sevrukov A., Elsayes K.M. et al.* Inflammatory Pseudotumor: The Great Mimicker. Am J Roentgenol 2012; 198: 217–227.
6. *Pack G.T., Baker H.W.* Total right hepatic lobectomy: report of a case. Ann Surg 1953; 138: 53–58.
7. *Lopez-Tomassetti Fernandez E.M., Luis H.D., Malagon A.M., Gonzalez I.A., Pallares A.C.* Recurrence of inflammatory pseudotumor in the distal bile duct: lessons learned from a single case and reported cases. World J Gastroenterol. 2006 Jun 28; 12 (24): 3938–3943.
8. *Arpacı E., Yetişyiğit T., Ulaş A. et al.* A case of intraabdominal myofibroblastic tumor with aggressive behavior. Turkish Journal of Oncology 2010; 25: 1: 28–32.
9. *Gleason B.C., Hornick J.L.* Inflammatory myofibroblastic tumours: where are we now? J Clin Pathol 2008; 61: 428–437.
10. *Kim K., Park C., Lee J. et al.* Inflammatory myofibroblastic tumor of the stomach with peritoneal dissemination in a young adult: imaging findings. Abdom Imaging 2004; 29: 9–11.
11. *Hosler G.A., Steinberg D.M., Sheth S. et al.* Inflammatory pseudotumor: a diagnostic dilemma in cytopathology. Diagnostic Cytopathology 2004; 4: 267–270.
12. *Shi H., Wei L., Sun L., Guo A.* Primary gastric inflammatory myofibroblastic tumor: A clinicopathologic and immunohistochemical study of 5 cases. Pathol Res Pract 2010; 206: 5: 287–291.
13. *Butrynski J.E., D'Adamo D.R., Hornick J.L. et al.* Crizotinib in ALK-rearranged inflammatory myofibroblastic tumor. N Engl J Med 2010; 363: 18: 1727–1733.
14. *Cook J.R., Dehner L.P., Collins M.H., Ma Z., Morris S.W., Coffin C.M. et al.* Anaplastic lymphoma kinase (ALK) expression in the inflammatory myofibroblastic tumor: a comparative immunohistochemical study. Am J Surg Pathol. 2001; 25: 1364–1371.
15. *Kim B.S., Joo S.H., Kim G.Y., Joo K.R.* Aggressive hilar inflammatory myofibroblastic tumor with hilar bile

duct carcinoma in situ. J Korean Surg Soc. 2011 Dec; 81 Suppl 1: S59–63. doi: 10.4174/jkss.2011.81.Suppl1.S59. Epub 2011 Nov 25.

16. *Martín Malagón A., López-Tomassetti Fernández E., Arteaga González I., Carrillo Pallarés A., Díaz Luis H.* Inflammatory myofibroblastic tumor of the distal bile duct associated with lymphoplasmacytic sclerosing pancreatitis. Case report and review of the literature. Pancreatology. 2006; 6 (1–2): 145–54.
17. *Rosenbaum L., Fekrazad M. H., Rabinowitz I., Vasef M. A.* Epstein-Barr virus-associated inflammatory pseudotumor of the spleen: report of two cases and review of the literature. J Hematop. 2009; 2: 127–131.
18. *Dehner L.P., Coffin C. M.* Idiopathic fibrosclerotic disorders and other inflammatory pseudotumors. Semin Diagn Pathol. 1998 May; 15 (2): 161–173.
19. *Sim A, Lee MW, Nguyen GK.* Inflammatory myofibroblastic tumour of the pancreas. Can J Surg.2008; 51: E23-E24.
20. *Pungpapong S., Geiger X. J., Raimondo M.* Inflammatory myofibroblastic tumor presenting as a pancreatic mass: a case report and review of the literature. JOP. 2004; 5: 360–367.
21. *Ashcroft M.W., Ng C. S., Frost R. A., Freeman A. H.* Biliary inflammatory pseudotumour: report of two cases and review of the literature. Clin Radiol. 2009; 64: 449–455.
22. *Büyükyavuz I., Karnak I., Haliloglu M., Senocak M. E.* Inflammatory myofibroblastic tumour of the extrahepatic bile ducts: an unusual cause of obstructive jaundice in children. Eur J Pediatr Surg. 2003 Dec; 13 (6): 421–4.
23. *Kwak J.W., Paik C. N., Jung S. H., Chang U. I., Lee K. M., Chung W. C., Yoo J. Y., Yang J. M.* An inflammatory myofibroblastic tumor of the ampulla of vater successfully managed with endoscopic papillectomy: report of a case. Gut Liver. 2010 Sep; 4(3): 419–22.
24. *Stuckmann G., Flury R., Heinz W., Strunk H.* Inflammatory myofibroblastic tumour (so-called pseudotumour) of the hepatobiliary system. Ultraschall Med. 2004 Sep; 25(5): 373–6.
25. *Rastogi A., Bihari C., Gupta N., Deka P., Kumar A., Negi S. S., Arora A.* Hilar Inflammatory Pseudotumour with Hepatic Artery Atheroma-mimicker of Klatskin Tumour. Indian J Surg Oncol. 2015 Mar; 6(1): 86–89.
26. *Venkataraman S., Semelka R. C., Braga L., Danet I. M., Woosley J. T.* Inflammatory myofibroblastic tumor of the hepatobiliary system: report of MR imaging appearance in four patients. Radiology. 2003; 227: 758–763.
27. *Donner L.R., Trompler R. A., White R. R.* 4th Progression of inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor) of soft tissue into sarcoma after several recurrences. Hum Pathol. 1996; 27: 1095–1098.

## К статье

Эндоскопическая диагностика миофибробластической опухоли терминального отдела холедоха у 35-летнего больного (стр. 101–106)

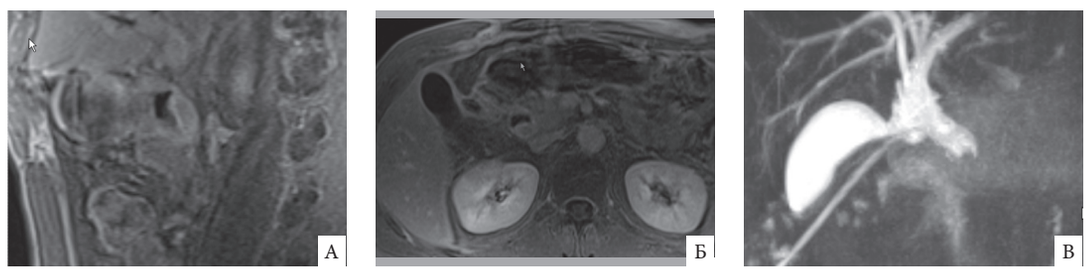
## To article

Endoscopic diagnosis of the distal common bile duct myofibroblastic tumor in the35-year-old patient (p. 101–106)

**Рисунок 1.**
Фистулография

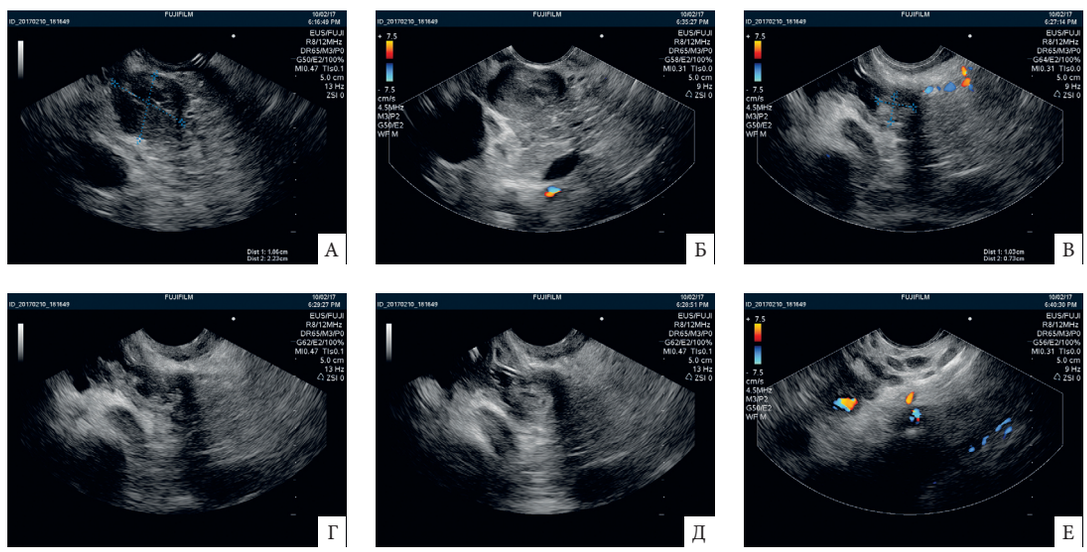
**Figure 1.**
Fistulography

**Рисунок 2 а-в.**
**Figure 2 а-в.**




МРТ, МР-холангиография. а – продольный срез МРТ; б – поперечный срез МРТ; в – МР-холангиография.
MRI, MR-cholangiography. a – longitudinal section of MRI; б – cross section of MRI; в – MR-cholangiography.

**Рисунок 3 а-е.**
**Figure 3 а-е.**




ЭУС. а, б – поперечный скан терминального отдела холедоха с объемным тканевым образованием в его просвете, практически полностью обтурирующим просвет; в, г – продольный скан терминального отдела холедоха с объемным тканевым образованием, состоящим из двух долей, д – продольный скан терминального отдела холедоха с объемным тканевым образованием и бранша дренажа Кера, е – множественные лимфоузлы в области чревного ствола.
EUS. a, б – transverse scan of the distal common bile duct with a tissue formation in the lumen, almost completely occlusive lumen; в, г – longitudinal scan of the distal common bile duct with a tissue formation, which consists of two lobes; д – longitudinal scan of the distal common bile duct with a tissue formation and branch of drainage; е – multiple lymph nodes in the area of the celiac trunk.

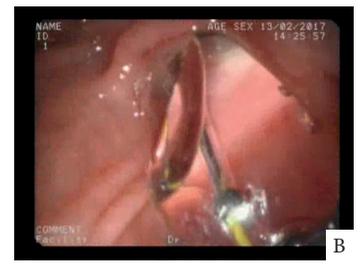
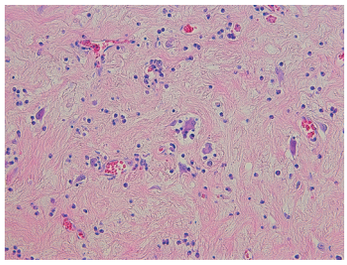


**Рисунок 4 а-г.**
**Figure 4 a-г.**

Дуоденоскопия, ЭРХПГ, баллонная дилатация холедоха, биопсия. а – устье холедоха с включением белого цвета после ранее выполненной ЭПСТ; б – канюляция холедоха; в-баллонная дилатация терминального отдела холедоха; г – мягкотканное образование белесоватого цвета, пролабирующее через папиллотомическое отверстие в просвет двенадцатиперстной кишки.
Duodenoscopy, ERCP, balloon dilatation of the distal common bile duct, biopsy. a – mouth of the common bile duct with the inclusion of white after a previously completed EPST; б – canulation the common bile duct; в-balloon dilatation of the distal common bile duct; г – tissue mass prolabium through the papillotomes hole into the lumen of the duodenum.



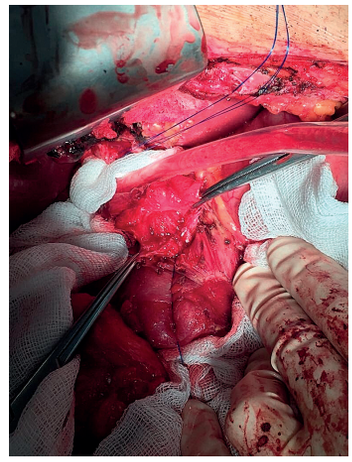
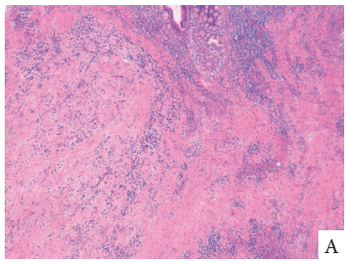
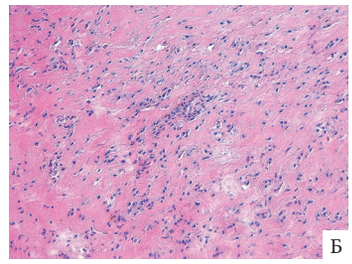
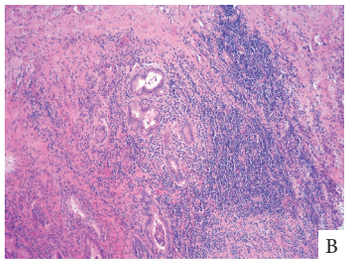


**Рисунок 5.**
**Figure 5.**
Гистологическая картина биопсийного материала. Окраска гематоксилином и эозином, ×200: в клеточном инфильтрате определяются фибробласты, миофибробласты, макрофаги, лимфоциты и плазмоциты. Выраженный фиброз стромы.
Histological picture of the biopsy material (hematoxylin and eosin, ×200): the cellular infiltrate is defined fibroblasts, myofibroblasts, macrophages, lymphocytes and plasmocytes. Marked fibrosis of the stroma.

**Рисунок 6.**
Интраоперационное фото – округлое образование в дистальной части холедоха.
**Figure 6.**
Intraoperative photo – rounded formation in the distal common bile duct.



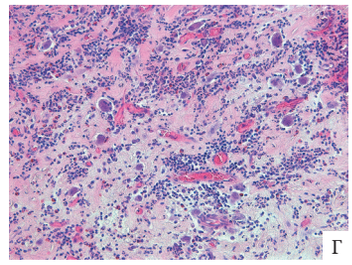
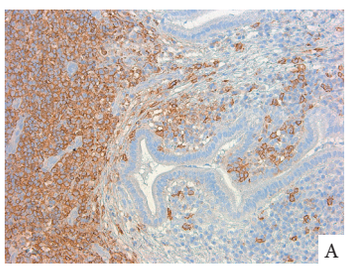




**Рисунок 7 а-г.**
Плановое морфологическое исследование операционного материала (окраска гематоксилином и эозином) – воспалительная миофибробластическая опухоль дистального отдела холедоха:
а – общий вид, ×5; б – веретеновидные клетки с фибробластной и миофибробластной дифференцировкой, ×100; в-выраженная лимфоцитарная инфильтрация стенки холедоха с формированием лимфоидных фолликулов, ×100; г – грануляционная ткань с инфильтрацией лимфоцитами, плазмоцитами, сегментоядерными нейтрофилами, большое количество макрофагов, многоядерные гигантские клетки, ×200.
**Figure 7 a-г.**
Planned morphological examination of the surgical material (hematoxilin and eosin) – inflammatory myofibroblastic tumor of the distal common bile duct:
a – general view ×5; б – fusiform cells with fibroblast and myofibroblast differentiation ×100; в-pronounced lymphocytic infiltration of the wall of choledochus with the formation of lymphoid follicles ×100; г – granulation tissue with infiltration of lymphocytes, plasmocells, segmented neutrophils, a large number of macrophages, multi-core giant cells ×200.



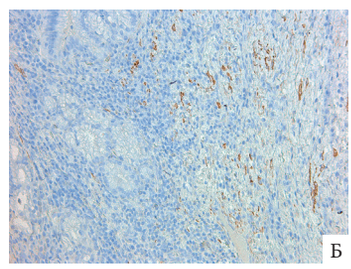




**Рисунок 8 а, б.**
Иммуногистохимическое исследование – воспалительная миофибробластическая опухоль дистального отдела холедоха: а – выраженная реакция В-лимфоцитов с CD20, ×200; б – в клетках воспалительного инфильтрата наблюдается очаговая экспрессия с десмином, ×100.
**Figure 8 а, б.**
Immunohistochemical study – inflammatory myofibroblastic tumor of the distal common bile duct: a – pronounced reaction of B-lymphocytes with CD20, ×200; б – focal expression with desmin in the cells of inflammatory infiltrate, ×100.