

## 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 THE 35-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 the 35-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 безболевым 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 настоятельностью 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

### 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

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

## Введение

( ) , - ; , - .

43% ( , - ).

;

[1, 2, 3]. [1].

[4].

## Материалы и методы

35 « : . 1

» :

7 ,

« ».

« .

## Результаты

« . . . . » ( . 2 , ), -

( . 2 )

10-11 , 12-13 ,

20 , ( 10 ) .

13 , 7 4

6 ,

10 . 18 , « . . . . »

10 . « . . . . »

( . 1).

7  
 ( .3), 15-17 . - -  
 1,8 , 2,6 ( , - . -  
 ). - -  
 19 , -  
 10 - , -  
 ( .3 , ), , -  
 1 1,3 , 1 0,6 ( .3 , ), - 18 13 10 7 , -  
 ( .6). -  
 ( .3). -  
 18 . : -  
 , -  
 , , -  
 , -  
 , -  
 , -  
 ( .4), - : -  
 ( .4). 20 15 . 5 -  
 , -  
 , -  
 ( .4 , ), , -  
 , -  
 , -  
 - -  
 ( .5). - ( .7 -). -  
 , -  
 : -  
 19-9- 1,4 / ( 37 / ); -0,74 , -  
 / ( 0-3 / ). « -  
 . . . » : -  
 : - ?  
 ? -  
 - ( .8 , ) -  
 , -  
 ICD-0 code 8825/1. -  
 -  
 2016 .

**Обсуждение**

[5].  
1953 . [6].  
G. Pack H. Baker  
2 20 .  
[7].  
[3, 8, 9]  
[3, 10].  
(  
) [11],  
(SMA),  
(ALK)  
, S-100, CD21, CD34, CD35, CD68,  
CD117, Ki 67, p53 [8, 12],  
[18].  
ALK- [3, 13].  
(ALK)  
[14].  
ALK- [20].  
[21].  
ALK- [16, 22, 23].  
[3, 15].  
[1, 3, 9].  
[16, 17].  
[18].  
[24, 25].  
( )  
[16]. IgG4 [26].  
[7].

... [18].

... [23].

... [3].

... [27].

## Заклучение

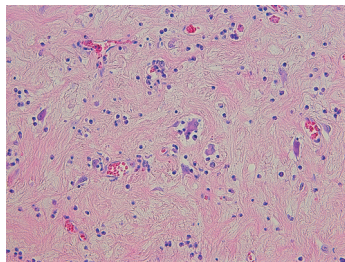
## Литература Reference

1. Дубова Е.А., Павлов К.А., Франк Г.А., ШегOLEв А.И. *Воспалительная миофибробластическая опухоль печени* [Inflammatory myofibroblastic liver tumor]. *Российский патологический журнал* 2009; 3: 25–28.  
*Dubova E. A., Pavlov K. A., Frank G. A., Shhegolev A. I. Vospalitel'naya miofibroblasticheskaya opukhol' pecheni* [Inflammatory myofibroblastic liver tumor]. *Russian Journal of Pathology* 2009; 3: 25–28. (In Russian)
2. Франк Г.А. *Проблемы морфологической классификации и диагностики мягкотканых опухолей* [Problems of morphological classification and diagnosis of soft tissue tumors]. *Практическая онкология* 2004; 5: 4: 231–236. (In Russian)  
*Frank G. A. Problemy morfologicheskoy 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. *Миофибробластическая опухоль легкого: проблемы дифференциальной диагностики*. *Журнал радиологии и ядерной медицины*. 2013; 6: 38–43.  
*Popov S. D., Il'ina N. A. Inflammatory myofibroblastic 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-Tomasetti 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., Yetişyigit 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 myoblastic tumor of the distal bile duct associated with lymphoplasmacytic sclerosing pancreatitis. Case report and review of the literature. *Pancreatol.* 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 myoblastic tumour of the pancreas. *Can J Surg.* 2008; 51: E23-E24.
  20. Pungpapong S., Geiger X. J., Raimondo M. Inflammatory myoblastic 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 pseudotumor: 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 myoblastic 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 myoblastic 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 myoblastic tumour (so-called pseudotumour) of the hepatobiliary system. *Ultraschall Med.* 2004 Sep; 25(5): 373–6.
  25. Rastogi A., Bihari C., Gupta N., Dekka 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 myoblastic 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 myoblastic tumor (inflammatory pseudotumor) of soft tissue into sarcoma after several recurrences. *Hum Pathol.* 1996; 27: 1095–1098.



Duodenoscopy, E•GP, balloon dilatation of the distal common bile duct, biopsy. a ... mouth of the common bile duct with the inclusion of white aXer a previously completed EPSTq ... canulation the common bile ductq -balloon dilatation of the distal common bile ductq ... tissue mass prolabium through the papillotomes hole into the lumen of the duodenum.



5.  
Figure 5.  
0 " , Δ288: ! # R #, # #. \*# = # #.

€istological picture of the biopsy material (hematoxylin and eosin, Δ288): the cellular inSltrate is deSned Sbroblasts, myoSbroblasts, macrophages, lymphocytes and plasmocytes. Mar|ed Sbrosis of the stroma.

6.  
@ ... !

Figure 6.  
Intraoperative photo ... rounded formation in the distal common bile duct.

7 - .  
( " )... !  
... ; , Δ5q ... # :  
! , Δ188q - # = #  
! , Δ188q ... ! ! #  
, # ! , !  
, # , Δ288.

Figure 7 - .  
Planned morphological examination of the surgical material (hematoxylin and eosin) ... inCammatory myoSbroblastic tumor of the distal common bile duct: a ... general view Δ5q ... fusiform cells with Sbroblast and myoSbroblast di•erentiation Δ188q -pronounced lymphocytic inSltration of the wall of choledochus with the formation of lymphoid follicles Δ188q ... granulation tissue with inSltration of lymphocytes, plasmocells, segmented neutrophils, a large number of macrophages, multi-core giant cells Δ288.

Figure 8 , .  
Immunohistochemical study ... inCammatory myoSbroblastic tumor of the distal common bile duct: a ... pronounced reaction of B-lymphocytes with GD28, Δ288q ... focal expression with desmin in the cells of inCammatory inSltrate, Δ188.