

DOI: 10.21294/1814-4861-2019-18-5-113-117
УДК: 616.37-006

Для цитирования: Шабунин А.В., Тавобилов М.М., Паклина О.В., Сетдикова Г.Р., Карпов А.А., Озерова Д.С. Солидно-псевдопапиллярная опухоль тела-хвоста поджелудочной железы у мужчины (клиническое наблюдение). Сибирский онкологический журнал. 2019; 18(5): 113–117. – doi: 10.21294/1814-4861-2019-18-5-113-117.

For citation: Shabunin A.V., Tavobilov M.M., Paklina O.V., Setdikova G.R., Karpov A.A., Ozerova D.E. Solid pseudopapillary tumor of the pancreas in a man: a case report. Siberian Journal of Oncology. 2019; 18(5): 113–117. – doi: 10.21294/1814-4861-2019-18-5-113-117.

СОЛИДНО-ПСЕВДОПАПИЛЛЯРНАЯ ОПУХОЛЬ ТЕЛА-ХВОСТА ПОДЖЕЛУДОЧНОЙ ЖЕЛЕЗЫ У МУЖЧИНЫ (КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ)

А.В. Шабунин^{1,2}, М.М. Тавобилов^{1,2}, О.В. Паклина¹, Г.Р. Сетдикова¹,
А.А. Карпов¹, Д.С. Озерова²

Городская клиническая больница им. С.П. Боткина Департамента здравоохранения города Москвы,
г. Москва, Россия¹

Россия, г. Москва, 125284, 2-й Боткинский пр-д, 5. E-mail: botkin.karpov@yandex.ru¹

Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования Министерства
здравоохранения Российской Федерации, г. Москва, Россия²

Россия, г. Москва, 125993, ул. Баррикадная, 2/1²

Аннотация

Введение. Солидно-псевдопапиллярная опухоль поджелудочной железы – довольно редкое новообразование, которое составляет менее 2 % от всех злокачественных опухолей поджелудочной железы, и встречается чаще всего у молодых женщин. **Материал и методы.** На базе Городской клинической больницы им. С.П. Боткина г. Москвы выполнено хирургическое лечение солидно-псевдопапиллярной опухоли тела и хвоста поджелудочной железы у мужчины 28 лет. **Результаты.** Объемное поражение поджелудочной железы было выявлено при плановом обследовании. Учитывая размер опухоли и солидный её характер, выполнена лапароскопическая дистальная резекция поджелудочной железы со спленэктомией. При иммуногистохимическом исследовании отмечена выраженная положительная ядерная реакция с β -катенином и прогестероном и отрицательная реакция с хромогранином А и синаптофизинном, что позволило сделать вывод о наличии у пациента солидно-псевдопапиллярной опухоли поджелудочной железы. **Выводы.** При опухолевом поражении поджелудочной железы даже у лиц мужского пола в дифференциальном диагнозе обязательно должна рассматриваться солидно-псевдопапиллярная опухоль. Хирургические стратегии следует выбирать в зависимости от расположения и размера опухоли и вовлеченности смежных органов, поскольку R0-резекция при солидно-псевдопапиллярной опухоли приводит к хорошей 5-летней выживаемости.

Ключевые слова: солидно-псевдопапиллярная опухоль, дистальная резекция поджелудочной железы, лапароскопические резекции поджелудочной железы.

SOLID PSEUDOPAPILLARY TUMOR OF THE PANCREAS IN A MAN: A CASE REPORT

А.В. Shabunin^{1,2}, М.М. Tavobilov^{1,2}, О.В. Paklina¹, G.R. Setdikova¹,
А.А. Karpov¹, D.S. Ozerova²

S.P. Botkin Municipal Clinical Hospital, Moscow, Russia¹

5, 2-nd Botkinsky proezd, Moscow-125284, Russia¹

Russian Medical Academy of Postgraduate Education, Moscow, Russia²

2/1 Barrikadnaya Street, Moscow-125993, Russia²

Abstract

Background. Solid pseudopapillary tumor of the pancreas is a rare neoplasm, accounting for only 1–2 % of all pancreatic neoplasms and having a tendency to affect mainly young women. **Material and methods.** We report a case of a solid pseudopapillary tumor of the pancreas in a 28-year-old man treated with laparoscopic distal pancreatectomy in Moscow Botkin Hospital. **Results.** The tumor was discovered incidentally by routine survey ultrasound or computed tomography of the abdomen. The patient underwent distal pancreatectomy with splenectomy. The immunohistochemical study showed a pronounced positive nuclear staining for β -catenin and progesterone and a negative staining for chromogranin A and synaptophysin, thus confirming the presence of solid pseudopapillary tumor of the pancreas. **Conclusion.** In case of pancreatic tumor, even in male patients, a solid pseudopapillary tumor must be considered in the differential diagnosis. Surgical strategies should be based on the location, size of the tumor and the involvement of adjacent organs, because R0-resection with a solid pseudopapillary tumor leads to a good 5-year survival.

Key words: solid pseudopapillary tumor, pancreatic resection, laparoscopic pancreatic resection.

Введение

Солидно-псевдопапиллярная опухоль поджелудочной железы (СППО) – довольно редкое новообразование, которое составляет менее 2 % от всех злокачественных опухолей поджелудочной железы [1]. СППО характерна для молодых женщин и, как правило, развивается на второй-третьей декаде жизни [2]. Впервые СППО описана в 1959 г. V. Frantz как новая опухоль, сочетающая солидный и кистозный компоненты, и названа «папиллярная кистозная опухоль поджелудочной железы» [3]. В литературе СППО встречается под синонимами: солидная и кистозная опухоль поджелудочной железы, папиллярная эпителиальная неоплазма поджелудочной железы, солидная и папиллярная эпителиальная неоплазма поджелудочной железы [4]. В 1996 г. данное новообразование включено в классификацию ВОЗ под термином «солидно-псевдопапиллярная опухоль поджелудочной железы» с обязательным наличием двух главных гистологических компонентов: солидного и папиллярного [5]. Несмотря на то, что СППО в классификации ВОЗ 2010 г. отнесена к группе злокачественных новообразований (ICD_O /3), прогноз жизни довольно благоприятный – 5-летняя выживаемость достигает 95 % [6]. Инвазия в соседние органы и отдаленные метастазы описаны лишь в 5 % всех случаев СППО, в связи с этим пациентам проводится только хирургический метод лечения (радикальная резекция) без последующего химиотерапевтического лечения [7].

Из всех описанных случаев СППО в мировой литературе мужчины составили менее 10 %. По данным M. Machado et al., СППО у лиц мужского пола обладает более четкими закономерностями возникновения и агрессивности по сравнению с женщинами [8]. Однако из-за малого объема выборки трудно определить, были ли различия дефинитивными или случайными [9].

В связи с редкостью данной опухоли у мужчин приводим клиническое наблюдение.

Больной Г., 28 лет, поступил в плановом порядке в отделение хирургии печени и поджелудочной же-

лезы ГКБ им. С.П. Боткина с амбулаторно выявленной опухолью тела поджелудочной железы. По данным МСКТ в многофазном режиме, а также УЗИ гепатобиллиарной зоны, диагностическая картина соответствовала нейроэндокринной опухоли (объемное образование в области тела поджелудочной железы, размерами 16×15×15 мм, умеренно гетерогенной структуры и васкуляризации). Уровень опухолевых маркеров (СА 19-9, РЭА, хромогранин А) – в пределах нормы.

Клинические проявления опухолевого процесса отсутствовали. При дообследовании какой-либо патологии со стороны других органов не выявлено. После обсуждения на междисциплинарном онкологическом консилиуме 01.03.18 выполнена лапароскопическая дистальная резекция поджелудочной железы со спленэктомией. Удаление селезенки выполнено в связи с невозможностью исключения злокачественного характера опухолевого процесса, а также для выполнения адекватной лимфаденэктомии. Течение послеоперационного периода гладкое, однако отмечалось наличие панкреатической фистулы класса В по ISGPS 2016.

Макропрепарат был представлен резецированным телом и хвостом поджелудочной железы, размерами 110×50×30 мм, селезенкой (рис. 1А). При зондировании главного панкреатического протока: проток до 50 мм, проходим. При раскрытии поджелудочной железы на переднюю и заднюю поверхности в теле обнаружена округло-овальная опухоль, размерами 15×10 мм, белесоватого цвета, которая располагалась в 10 мм от края резекции железы. На остальном протяжении ткань железы желтовато-сероватая дольчатая, на отдельных участках с липоматозом.

При гистологическом исследовании опухоль представлена солидными полями округлых и полигональных клеток с эозинофильной цитоплазмой и пикнотичными ядрами (рис. 1Б). Опухоль в пределах поджелудочной железы размером 15 мм (pT1c). В пяти исследованных парапанкреатических лимфатических узлах метастазов нет (pN0). В крае резекции опухолевого роста нет (R0). При

иммуногистохимическом исследовании отмечена выраженная положительная ядерная реакция с β -катенином и прогестероном. Отрицательная реакция с хромогранином А и синаптофизином (рис. 1В, Г).

Заключение: солидно-псевдопапиллярная опухоль поджелудочной железы, размером 15 мм. В краях резекции опухолевого роста нет (pT1c pN0 cM0 Pn0 VL0 R0). ICD-O 8425/3.

Обсуждение

В отличие от других опухолей поджелудочной железы, СППО имеет уникальные эпидемиологические характеристики: она в большинстве случаев развивается у молодых женщин, с гендерным соотношением – 10:1. Из-за её редкости и низкой частоты развития у лиц мужского пола клинические данные о СППО недостаточны. Как правило, симптомы данного новообразования неспецифичны, из них наиболее частыми являются боль в животе, дискомфорт, тошнота. Желтуха описана в редких случаях, даже при довольно больших опухолях, расположенных в головке поджелудочной железы, и с распространением на общий желчный проток [10].

Солидно-псевдопапиллярная опухоль трудна для диагностики как на дооперационном этапе, так и при гистологическом исследовании, особенно при размерах опухоли менее 30 мм. При МСКТ в ней обнаруживаются солидные и кистозные компоненты в разных пропорциях. Тем не менее при СППО менее 30 мм в диаметре кистозный компонент, как правило, отсутствует, и данные новообразования визуализируются как солидные

опухоли с четким, хорошо отграниченным краем [11]. Интраопухолевые кровоизлияния лучше выявляются при МРТ, чем при МСКТ [12]. Уровень онкомаркеров СА 19-9 и РЭА обычно находится в пределах нормы.

В нашем клиническом примере по данным МСКТ было получено больше информации за наличие гипervasкулярной опухоли, что предопределило план дообследования, включающий не только стандартный набор диагностических процедур, но и исследование специфических маркеров (хромогранин А). Следует отметить, что повышения уровня хромогранина А не было выявлено, что, видимо, связано как с характером опухоли, так и с её малым размером.

Солидно-псевдопапиллярная опухоль имеет четкие макро- и микроскопические данные. Макроскопически для большинства СППО характерен четкий хорошо отграниченный от окружающей ткани узел с наличием солидного, кистозного и папиллярного компонента. Его цвет зависит от преобладания того или иного компонента: от белесоватого в солидных участках до кирпично-красного в папиллярных участках. В описанном нами случае размер опухолевого узла был 15 мм белесоватого цвета, довольно хорошо отграничен от окружающей паренхимы поджелудочной железы. Учитывая мужской пол пациента, небольшой размер и белесоватый цвет опухолевого узла, новообразование макроскопически больше соответствовало нейроэндокринной опухоли, что вызвало дальнейшие трудности интерпретации микроскопических данных.

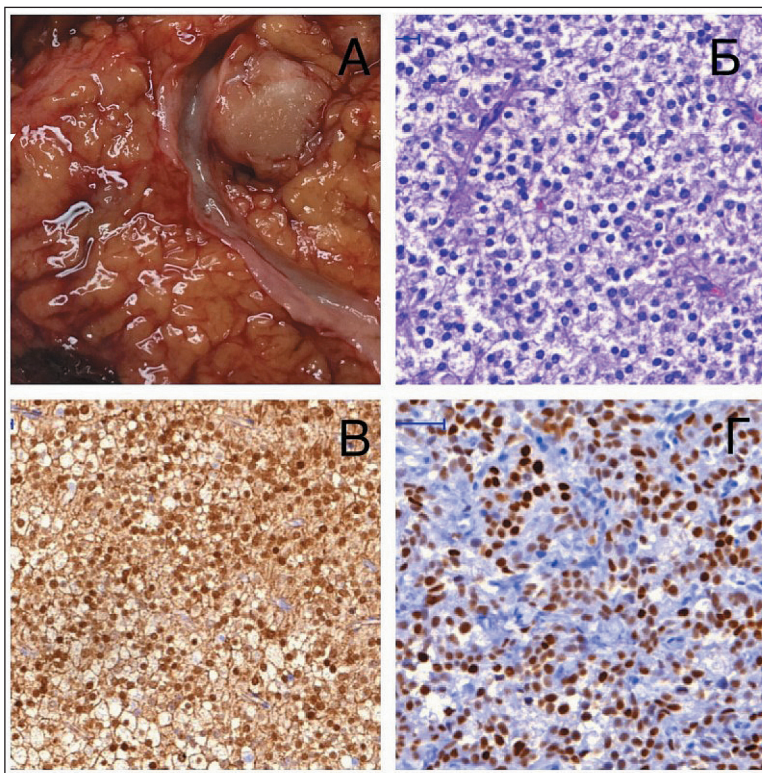


Рис. 1. А. Макропрепарат. В области тела поджелудочной железы определяется округло-овальная опухоль 1,5 см (указано стрелкой). Б. Микрофото. Солидные поля опухолевых клеток с амфотильной цитоплазмой и центрально расположенным пикнотичным ядром, окраска гематоксилином и эозин, $\times 400$. В. Микрофото. ИГХ-исследование. Ядерная реакция с бета-катенином, $\times 400$. Г. Микрофото. ИГХ-исследование. Ядерная реакция с прогестерон-рецептором, $\times 400$

Микроскопически солидный компонент СППО состоит из плохо связанных полигональных клеток, сосредоточенных возле кровеносных сосудов, образуя характерную псевдопапиллярную структуру. При трудных случаях для дифференциальной диагностики необходимо иммуногистохимическое исследование. Большинство СППО экспрессируют ядерный β -катенин, но не экспрессируют E-cadherin, в отличие от нейроэндокринных опухолей, при которых наблюдается полная противоположность экспрессии по данным маркерам [13]. Нейроэндокринный маркер – синаптофизин – не рекомендуется использовать в дифференциальной панели, поскольку он экспрессируется как в солидно-псевдопапиллярных, так и в нейроэндокринных опухолях.

По данным литературы, примерно в 15–20 % случаев СППО проявляет злокачественный потенциал в виде перинеуральной и сосудистой инвазии и наличием как местных, так и отдаленных метастазов. Наиболее часто наблюдаются метастазы в печень. Как правило, пол, возраст, размер опухоли, локализация опухоли в поджелудочной железе не связаны со злокачественным потенциалом СППО

[14]. В нашем наблюдении не было обнаружено перинеуральной и сосудистой инвазии, опухоль ограничена поджелудочной железой, без наличия регионарных и отдаленных метастазов.

Выводы

СППО – редкая опухоль поджелудочной железы с низким потенциалом злокачественности, которая чаще всего встречается у женщин. При маленьких размерах опухоли, без кистозной дегенерации, а также нормальных уровнях онкомаркеров (СА 19-9 и СЕА) в дифференциальном диагнозе обязательно должна рассматриваться СППО, даже у лиц мужского пола. Хирургическая тактика определяется расположением и размерами опухоли, а также зависит от вовлеченности смежных органов, поскольку R0-резекция при солидно-псевдопапиллярной опухоли приводит к хорошей 5-летней выживаемости, даже при наличии отдаленных метастазов и без последующей химиотерапии. На наш взгляд, предпочтение стоит отдавать мини-инвазивным хирургическим вмешательствам, таким как лапароскопическая или роботическая резекция поджелудочной железы.

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

1. Papavramidis T., Papavramidis S. Solid pseudopapillary tumors of the pancreas: review of 718 patients reported in English literature. *J Am Coll Surg.* 2005; 200(6): 965–972. doi: 10.1016/j.jamcollsurg.2005.02.011.
2. Guo N., Zhou Q.B., Chen R.F., Zou S.Q., Li Z.H., Lin Q., Wang J., Chen J.S. Diagnosis and surgical treatment of solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas: analysis of 24 cases. *Can J Surg.* 2011 Dec; 54(6): 368–74. doi: 10.1503/cjs.011810.
3. Frantz V.K. Tumors of the pancreas. Atlas of Tumor Pathology, VII. Fascicles 27 and 28. Armed Forces Institute of Pathology, Washington, DC, 1959. 32–33.
4. Nishihara K., Nagoshi M., Tsuneyoshi M., Yamaguchi K., Hayashi I. Papillary cystic tumors of the pancreas: assessment of their malignant potential. *Cancer.* 1993; 71(1): 82–92.
5. Zinner M.J., Shurbaji M.S., Cameron J.L. Solid and papillary epithelial neoplasms of the pancreas. *Surgery.* 1990 Sep; 108(3): 475–80.
6. Klöppel G., Luttges J., Klimstra D.S., Hamilton S.R. Pathology and genetics of tumours of the digestive system. Lyon: IARC press, 2000. 48.
7. Sperti C., Berselli M., Pasquali C., Pastorelli D., Pedrazzoli S. Aggressive behaviour of solid-pseudopapillary tumor of the pancreas in adults: a case report and review of the literature. *World J Gastroenterol.* 2008 Feb 14; 14(6): 960–5. doi: 10.3748/wjg.14.960.
8. Machado M.C., Machado M.A., Bacchella T., Jukemura J., Almeida J.L., Cunha J.E. Solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas: distinct patterns of onset, diagnosis, and prognosis for male versus female patients. *Surgery.* 2008 Jan; 143(1): 29–34. doi: 10.1016/j.surg.2007.07.030.

9. Matos J.M., Grützmann R., Agaram N.P., Saeger H.D., Kumar H.R., Lillemo K.D., Schmidt C.M. Solid pseudopapillary neoplasms of the pancreas: a multi-institutional study of 21 patients. *J Surg Res.* 2009 Nov; 157(1): e137–42. doi: 10.1016/j.jss.2009.03.091.
10. Baek J.H., Lee J.M., Kim S.H., Kim S.J., Kim S.H., Lee J.Y., Han J.K., Choi B.I. Small (≤ 3 cm) solid pseudopapillary tumors of the pancreas at multiphasic multidetector CT. *Radiology.* 2010 Oct; 257(1): 97–106. doi: 10.1148/radiol.10092089.
11. Ansari N.A., Ramalho M., Semelka R.C., Buonocore V., Gigli S., Maccioni F. Role of magnetic resonance imaging in the detection and characterization of solid pancreatic nodules: An update. *World J Radiol.* 2015 Nov 28; 7(11): 361–74. doi: 10.4329/wjr.v7.i11.361.
12. Kim M.J., Jang S.J., Yu E. Loss of E-cadherin and cytoplasmic-nuclear expression of β -catenin are the most useful immunoprofiles in the diagnosis of solid-pseudopapillary neoplasm of the pancreas. *Hum Pathol.* 2008 Feb; 39(2): 251–8. doi: 10.1016/j.humpath.2007.06.014.
13. Huang H.L., Shih S.C., Chang W.H., Wang T.E., Chen M.J., Chan Y.J. Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas: clinical experience and literature review. *World J Gastroenterol.* 2005 Mar 7; 11(9): 1403–9. doi: 10.3748/wjg.v11.i9.1403.
14. Kim M.J., Choi D.W., Choi S.H., Heo J.S., Sung J.Y. Surgical treatment of solid pseudopapillary neoplasms of the pancreas and risk factors for malignancy. *Br J Surg.* 2014 Sep; 101(10): 1266–71. doi: 10.1002/bjs.9577.

Поступила/Received 18.01.19
Принята в печать/Accepted 04.02.19

СВЕДЕНИЯ ОБ АВТОРАХ

Шабунин Алексей Васильевич, доктор медицинских наук, профессор, член-корр. РАН, заведующий кафедрой хирургии Российской медицинской академии непрерывного профессионального образования; главный врач Городской клинической больницы имени С.П. Боткина (г. Москва, Россия). E-mail: info@botkinmoscow.ru. SPIN-код: 8917-7732. ORCID: 0000-0002-4230-8033. Researcher ID (WOS): W-1068-2017.

Тавобилов Михаил Михайлович, доктор медицинских наук, доцент кафедры хирургии Российской медицинской академии непрерывного профессионального образования; заведующий отделением хирургии печени и поджелудочной железы Городской клинической больницы имени С.П. Боткина (г. Москва, Россия). SPIN-код: 9554-5553. ORCID: 0000-0003-0335-1204.

Паклина Оксана Владимировна, доктор медицинских наук, профессор, заведующая патологоанатомическим отделением, Городская клиническая больница им. С.П. Боткина (г. Москва, Россия). E-mail: dr.oxanapaklina@mail.ru. SPIN-код: 4575-9762. ORCID: 0000-0001-6373-1888.

Сетдикова Галия Равиловна, кандидат медицинских наук, врач-патологоанатом патологоанатомического отделения, Городская клиническая больница им. С.П. Боткина (г. Москва, Россия). E-mail: dr.setdikova@mail.ru. SPIN-код: 6551-0854. ORCID: 0000-0002-5262-4953

Карпов Алексей Андреевич, кандидат медицинских наук, врач-хирург отделения хирургии печени и поджелудочной железы, Городская клиническая больница им. С.П. Боткина. (г. Москва, Россия). SPIN-код: 9877-4166. ORCID: 000-0002-5142-1302.

Озерова Дарья Сергеевна, клинический ординатор кафедры хирургии Российской медицинской академии непрерывного профессионального образования (г. Москва, Россия). ORCID: 0000-0003-4996-5025.

Финансирование

Это исследование не потребовало дополнительного финансирования.

Конфликт интересов

Авторы объявляют, что у них нет конфликта интересов.

ABOUT THE AUTHORS

Alexey V. Shabunin, MD, Professor, Corresponding Member of Russian Academy of Sciences, Head of Surgery Department, Russian Medical Academy of Continues Professional Education; Head Physician of S.P. Botkin Municipal Clinical Hospital (Moscow, Russia). E-mail: info@botkinmoscow.ru. ORCID: 0000-0002-4230-8033. Researcher ID (WOS): W-1068-2017.

Mikhail M. Tavobilov, MD, DSc, Surgery Department, Russian Medical Academy of Continues Professional Education; Head of the Department of Hepatobiliary and Pancreatic Surgery, S.P. Botkin Municipal Clinical Hospital (Moscow, Russia). ORCID: 0000-0003-0335-1204.

Oksana V. Paklina, MD, Professor, Head of Anatomic Pathology Department, S.P. Botkin Municipal Clinical Hospital (Moscow, Russia). ORCID: 0000-0001-6373-1888.

Galia R. Setdikova, MD, PhD, Pathologist, Anatomic Pathology Department, Municipal Clinical Hospital named after S.P. Botkin (Moscow, Russia). ORCID: 0000-0002-5262-4953

Alexey A. Karpov, MD, PhD, Surgeon, Department of Hepatobiliary and Pancreatic Surgery, S.P. Botkin Municipal Clinical Hospital (Moscow, Russia). ORCID: 000-0002-5142-1302.

Daria S. Ozerova, MD, Resident, Surgery Department, Russian Medical Academy of Continues Professional Education (Moscow, Russia). ORCID: 0000-0003-4996-5025.

Funding

This study required no funding.

Conflict of interest

The authors declare that they have no conflict of interest.