



disponibile su www.sciencedirect.com



journal homepage: www.elsevier.com/locate/itjm



IMMAGINI IN MEDICINA CLINICA

Un caso raro di angiomatosi epatica diffusa nell'adulto: ruolo della scintigrafia con emazie marcate nell'ambito dell'imaging diagnostico multimodale

The role of red blood cell scintigraphy in the multiple-modality imaging diagnosis of a rare case of diffuse hepatic hemangiomas in an adult

Ernesto Cason ^{a,*}, Giorgio Treglia ^b, Paolo Orlandi ^c, Giorgio Fagioli ^a

^a UO Medicina Nucleare, Ospedale Maggiore, Azienda USL di Bologna

^b Istituto di Medicina Nucleare, Policlinico A. Gemelli, Università Cattolica del Sacro Cuore, Roma

^c UO Radiologia, Ospedale Maggiore, Azienda USL di Bologna

Ricevuto il 3 agosto 2010; accettato il 10 gennaio 2011
disponibile online il 10 marzo 2011

KEYWORDS

Hepatic hemangioma;
Diffuse hepatic hemangiomas;
Red blood cell scintigraphy;
SPECT/CT.

Summary

Introduction: Angiomas are one of the most common primary tumors of the liver. Diffuse hepatic angiomas, however, is quite rare and usually observed in pediatric patients. We report a rare case of diffuse hepatic hemangiomas in a 33-year-old woman.

Case report: The patient presented with abdominal pain and a palpable upper abdominal mass. Abdominal CT and magnetic resonance imaging (MRI) findings suggested diffuse hepatic hemangiomas, but this finding was not confirmed by subsequent contrast-enhanced abdominal ultrasonography (US). The patient then underwent single photon emission computed tomography (SPECT)/CT scintigraphy with Tc-99m-labeling of red blood cells (RBC). This examination revealed increased uptake of labeled erythrocytes in several of the hepatic lesions corresponding to CT and RM findings, thereby confirming the clinical hypothesis of diffuse hepatic hemangiomas.

Discussion: RBC scintigraphy with SPECT/CT can facilitate the comparison of other cross-sectional imaging methods such as CT and MRI. This case highlights the importance of a multiple-modality approach in the imaging diagnosis of this condition.

© 2010 Elsevier Srl. All rights reserved.

* Corrispondenza: UO Medicina Nucleare, Ospedale Maggiore, largo Nigrisoli 2 - 40133 Bologna.
E-mail: e.cason@ausl.bo.it (E. Cason).

Introduzione

L'angioma epatico è uno dei più comuni tumori del fegato [1], mentre l'angiomasosi epatica diffusa è una patologia rara, più frequente nell'infanzia [2–7]. Riportiamo di seguito un caso di angiomasosi epatica diffusa di riscontro radiologico in un adulto, sottolineando l'importanza della scintigrafia con emazie marcate nell'ambito dell'imaging diagnostico multimodale.

Gli autori dichiarano che lo studio presentato è stato realizzato in accordo con gli standard etici stabiliti nella Dichiarazione di Helsinki, e che il consenso informato è stato ottenuto da tutti i partecipanti prima del loro arruolamento allo studio.

Caso clinico

Una donna di 33 anni con storia clinica di sarcoidosi è stata sottoposta a un esame di tomografia computerizzata (TC) dell'addome per dolore addominale persistente e massa addominale palpabile a livello dell'addome superiore all'esame obiettivo.

L'esame TC con mezzo di contrasto ha evidenziato multiple aree ipodense a livello epatico in fase venosa precoce (fig. 1) con presa di contrasto nelle fasi tardive a livello di alcune aree, quadro compatibile con angiomasosi epatica diffusa.

La paziente è stata successivamente sottoposta a un esame di risonanza magnetica dell'addome (RM) che ha mostrato multiple lesioni epatiche ipointense rispetto al parenchima epatico nelle immagini T1 pesate e iperintense nelle immagini T2 FAT SAR pesate (fig. 2a), con presa di contrasto di alcuni noduli in fase tardiva nelle immagini in T1 (fig. 2b), avvalorando i reperti TC. Successivamente la paziente è stata sottoposta anche a un'ecografia angiocontrastografica dell'addome che non è stata concordante con i reperti TC e RM: in particolare l'indagine, mirata allo studio

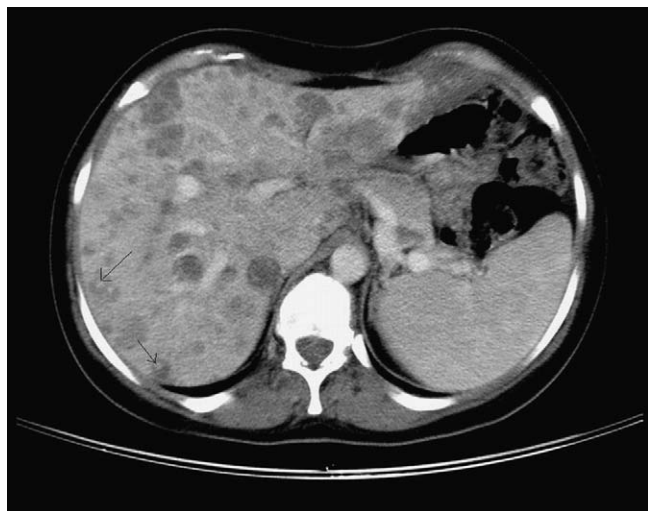


Figura 1 La TC dell'addome con mezzo di contrasto documenta multiple aree ipodense nel parenchima epatico in fase venosa.

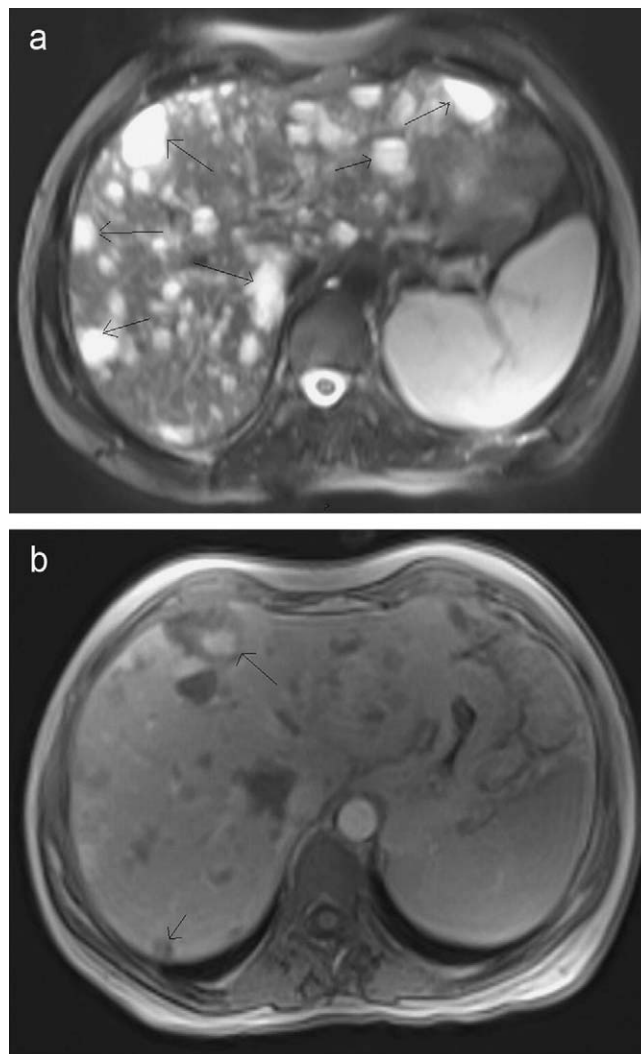


Figura 2 La RM dell'addome con mezzo di contrasto documenta multiple lesioni epatiche ipointense rispetto al parenchima epatico nelle immagini T1 pesate e iperintense nelle immagini T2 FAT SAT (a) con presa di contrasto tardiva di alcuni noduli in T1 (b), avvalorando i reperti TC di angiomasosi epatica diffusa.

della lesione di maggiore dimensioni, ha evidenziato in fase arteriosa debole vascolarizzazione periferica con alcuni spot ipervascolari contestuali, mentre in fase portale e soprattutto tardiva è stata osservata ipovascolarizzazione. Analogamente, anche le altre lesioni sono risultate ipovascolarizzate in fase tardiva. Alla luce del contesto clinico di sarcoidosi cutanea e di morbo celiaco, è stato posto sospetto ecografico per noduli epatici di granulazione o di localizzazione linfomatosa epatica.

Al fine di confermare o escludere la diagnosi di angiomasosi epatica diffusa e per poter arrivare a una decisione clinica, la paziente è stata sottoposta a una scintigrafia con emazie marcate. Dapprima, per proteggere la tiroide, sono stati somministrati alla paziente 400 mg per os di perclorato di potassio; dopo 30 minuti, per una corretta marcatura delle emazie, sono stati somministrati 10 mg ev di pirofosfato e infine, dopo altri 30 minuti, sono stati somministrati ev 740 MBq di Na-^{99m}TcO₄, in bolo [8]. Le

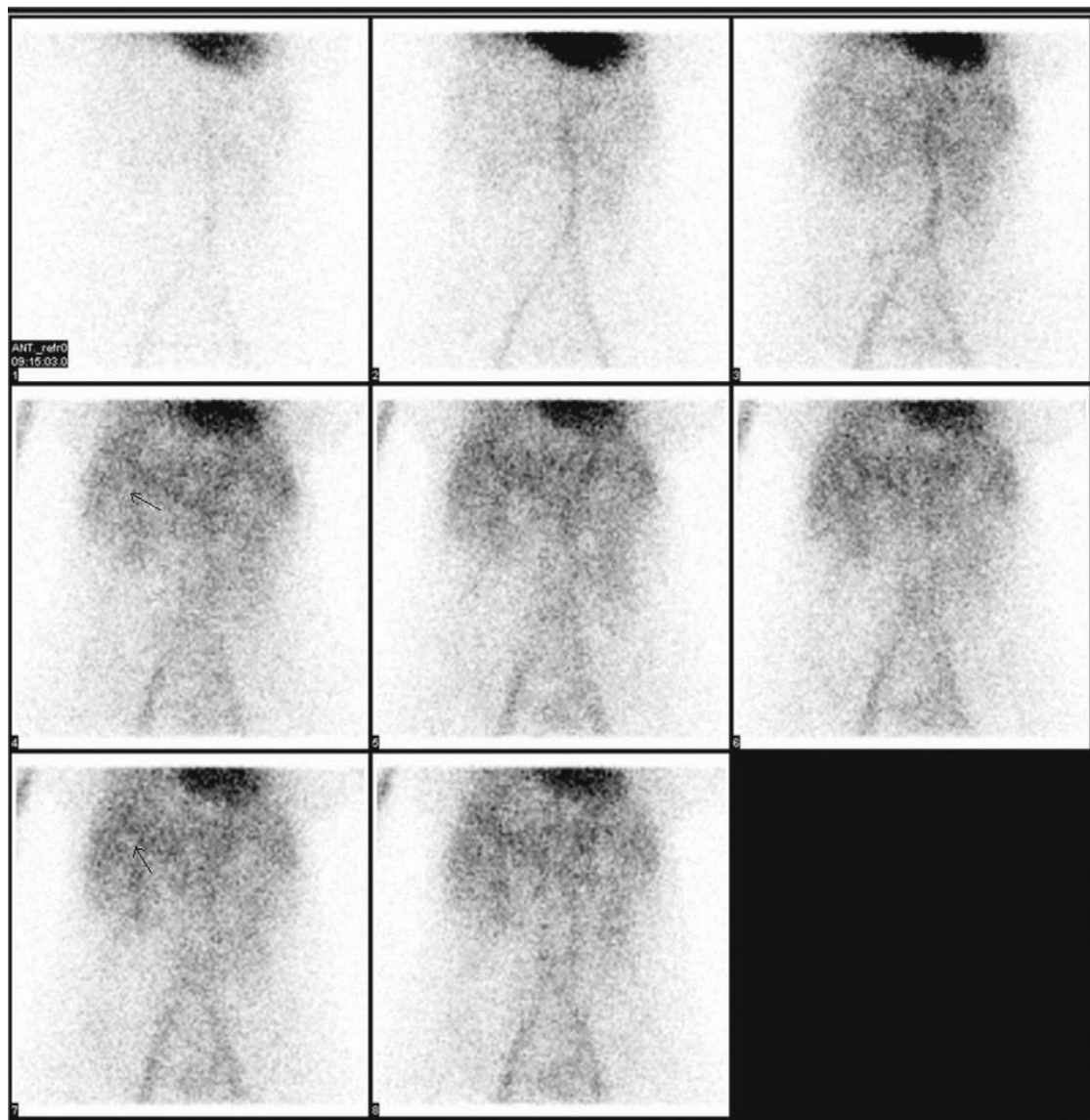


Figura 3 Scintigrafia con emazie marcate: le immagini dinamiche di perfusione (immagini precoci) documentano multiple aree di ridotta captazione del radiocomposto a livello epatico.

immagini sono state acquisite utilizzando una gammacamera ibrida SPECT/TC.

Le immagini dinamiche di perfusione sono state ottenute nei primi 2 minuti dalla somministrazione del radiocomposto e un'immagine statica precoce è stata acquisita a 5 minuti dalla somministrazione delle emazie marcate. Le immagini precoci hanno dimostrato, a livello del fegato, multiple aree di ridotta captazione del radiocomposto (*fig. 3*).

Successivamente sono state acquisite anche immagini statiche tardive (a 4 ore dalla somministrazione del radiocomposto) e rilevazioni tomografiche SPECT/TC dell'addome superiore. Le immagini tardive e le rilevazioni tomografiche hanno documentato multiple aree di aumentata captazione degli eritrociti marcati in corrispondenza delle multiple lesioni di riscontro TC (*fig. 4*).

Questi reperti, suggestivi per angiomasiosi epatica diffusa, hanno permesso di evitare l'esecuzione di una biopsia o di un intervento chirurgico su un tessuto fortemente vascolarizzato.

Discussione

L'angioma epatico è uno dei più comuni tumori del fegato, presentandosi in oltre il 7% della popolazione [1]. L'angiomasiosi epatica diffusa è invece una condizione rara, più frequente nell'infanzia che in età adulta [2–7], la cui eziologia è sconosciuta, anche se nella sua insorgenza è stato ipotizzato un possibile ruolo degli ormoni sessuali femminili [3–9].

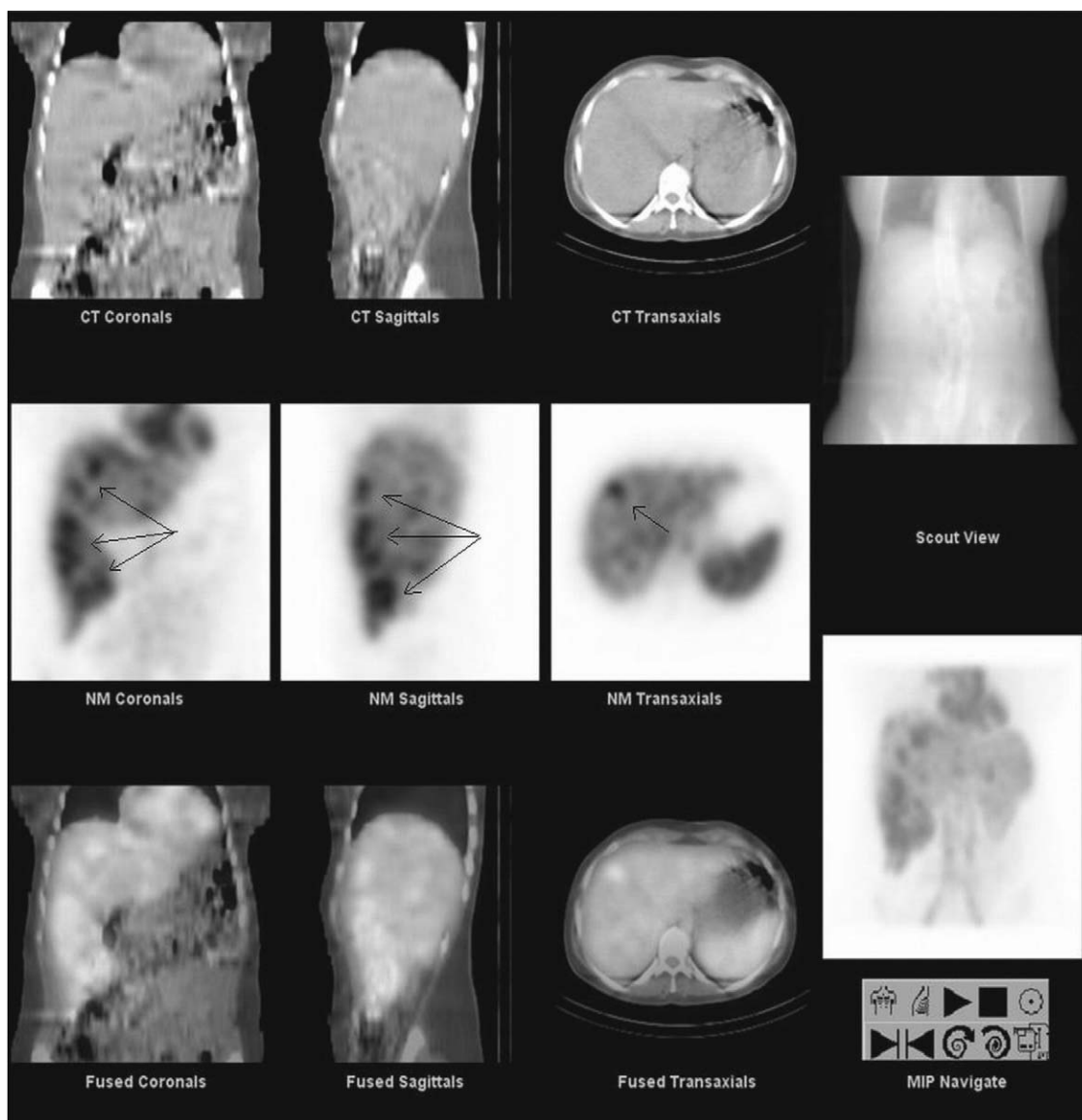


Figura 4 La rilevazione tomoscintigrafica tardiva SPECT/TC documenta multiple aree di iperaccumulo delle emazie marcate a livello epatico in corrispondenza delle aree ipodense di riscontro TC.

I pazienti con angiomatosi diffusa del fegato generalmente presentano sintomi come dolore addominale assieme al reperto obiettivo di massa palpabile a livello dell'addome superiore [2–15].

La diagnosi differenziale è rivolta soprattutto verso i tumori maligni epatici, specialmente quelli di origine vascolare, anche se al momento non vi sono sicuri reperti radiologici differenziali.

Uno o più angiomi si osservano spesso come reperto occasionale in corso di indagini TC o ecografiche [1–12]. Nelle immagini TC con mezzo di contrasto gli angiomi appaiono come aree ipodense con presa di contrasto ("contrast enhancement") nelle fasi tardive [10–12].

L'ecografia, senza e con mezzo di contrasto, può identificare la presenza di lesioni epatiche, ma non sempre riesce a chiarire con certezza la loro natura; anche la RM, benché sia comunque una metodica superiore alla TC nell'identificazione

di noduli epatici, non riesce a volte a discriminare gli angiomi epatici dalle metastasi ipervascolarizzate [10–16].

Nella scintigrafia epatica con emazie marcate il reperto tipico dell'angioma a livello epatico è un'area di ipoperfusione delle emazie marcate nelle immagini di perfusione, associata a iperaccumulo focale delle emazie marcate nelle immagini tardive. Risulta preferibile aggiungere una rilevazione tomografica SPECT/TC che, combinando le informazioni funzionali SPECT con quelle anatomiche TC, permette di migliorare l'accuratezza diagnostica nel caso di localizzazioni in sedi critiche, per esempio in prossimità del cuore o vicino ai principali vasi intraepatici [13,14]. La scintigrafia con emazie marcate si è dimostrata una metodica sensibile e altamente specifica per la diagnosi di angiomi epatici e con un valore aggiunto nell'analisi costo-efficacia, riducendo il numero di pazienti da sottoporre a metodiche invasive come l'angiografia [11,14].

Nel caso riportato l'approccio diagnostico multimodale (inclusa la scintigrafia con emazie marcate con rilevazioni SPECT/TC) ha svolto un ruolo importante nella diagnosi di angiomatosi epatica diffusa. In accordo con i reperti scintigrafici, TC e RM, la paziente non è stata sottoposta a interventi chirurgici o altre indagini invasive, con conseguente riduzione della morbilità e dei costi.

Conflitto di interessi

Gli autori dichiarano di essere esenti da conflitto di interessi.

Bibliografia

- [1] Yoon SS, Charny CK, Fong Y, Jarnagin WR, Schwartz LH, Blumgart LH, et al. Diagnosis, management, and outcomes of 115 patients with hepatic hemangioma. *J Am Coll Surg* 2003;197(3):392–402.
- [2] Jayanthi V, Shankar TR, Ravindran C, Sudalaimuthu S, Chandrasekar TS. Diffuse hepatic hemangiomas: case report. *Trop Gastroenterol* 2000;21(4):188–9.
- [3] Ozakyol A, Kebapci M. Enhanced growth of hepatic hemangiomas in two adults after postmenopausal estrogen replacement therapy. *Tohoku J Exp Med* 2006;210(3):257–61.
- [4] Langner C, Thonhofer R, Hegenbarth K, Trauner M. Diffuse hemangiomas of the liver and spleen in an adult. *Pathologe* 2001;22(6):424–8.
- [5] Moon WS, Yu HC, Lee JM, Kang MJ. Diffuse hepatic hemangiomas in an adult. *J Korean Med Sci* 2000;15(4):471–4.
- [6] Langsteger W, Lind P, Költringer P, Eber O. An unusual case of hepatic hemangiomas: sonographic, CT, and 99mTc-RBC findings. *AJR Am J Roentgenol* 1990;154(2):423.
- [7] Kim EH, Park SY, Ihn YK, Hwang SS. Diffuse hepatic hemangiomas without extrahepatic involvement in an adult patient. *Korean J Radiol* 2008;9(6):559–62.
- [8] Royal HD, Brown ML, Drum DE, Nagle CE, Sylvester JM, Ziessman HA. Procedure guideline for hepatic and splenic imaging. *Society of Nuclear Medicine. J Nucl Med* 1998;39(6):1114–6.
- [9] Lehmann FS, Beglinger C, Schnabel K, Terracciano L. Progressive development of diffuse liver hemangiomas. *J Hepatol* 1999;30(5):951–4.
- [10] Semelka RC, Martin DR, Balci C, Lance T. Focal liver lesions: comparison of dual-phase CT and multisequence multiplanar MR imaging including dynamic gadolinium enhancement. *J Magn Reson Imaging* 2001;13(3):397–401.
- [11] Birnbaum BA, Noz ME, Chapnick J, Sanger JJ, Megibow AJ, Maguire Jr GQ, et al. Hepatic hemangiomas: diagnosis with fusion of MR, CT, and Tc-99m-labeled red blood cell SPECT images. *Radiology* 1991;181(2):469–74.
- [12] Birnbaum BA, Weinreb JC, Megibow AJ, Sanger JJ, Lubat E, Kanamuller H, et al. Definitive diagnosis of hepatic hemangiomas: MR imaging versus Tc-99m-labeled red blood cell SPECT. *Radiology* 1990;176(1):95–101.
- [13] Zheng JG, Yao ZM, Shu CY, Zhang Y, Zhang X. Role of SPECT/CT in diagnosis of hepatic hemangiomas. *World J Gastroenterol* 2005;11(34):5336–41.
- [14] Schillaci O, Danieli R, Manni C, Capocchetti F, Simonetti G. Technetium-99m-labelled red blood cell imaging in the diagnosis of hepatic haemangiomas: the role of SPECT/CT with a hybrid camera. *Eur J Nucl Med Mol Imaging* 2004;31(7):1011–5.
- [15] Kim JD, Chang UI, Yang JM. Clinical challenges and images in GI, Diffuse hepatic hemangiomas involving the entire liver. *Gastroenterology* 2008;134(7):1830–2197.
- [16] Marinis A, Kairi E, Theodosopoulos T, Kondi-Pafiti A, Smyrniotis V. Right colon and liver hemangiomas: a case report and a review of the literature. *World J Gastroenterol* 2006;12(39):6405–7.