

**Д. І. Кебало<sup>1</sup>, Н. П. Мирошнікова<sup>1</sup>, Е. Д. Званцева<sup>2</sup>, М. М. Мілица<sup>3</sup>, С. М. Пащенко<sup>3</sup>, Н. М. Волошина<sup>3</sup>**

<sup>1</sup>Медичний центр «КОМРЕЦЬ»

Запоріжжя, Україна

<sup>2</sup>Запорізький обласний клінічний онкологічний диспансер

Запоріжжя, Україна

<sup>3</sup>Державний заклад «Запорізька медична академія післядипломної освіти Міністерства охорони здоров'я України»,

Запоріжжя, Україна

**D. I. Kebalo<sup>1</sup>, N. P. Miroshnikova<sup>1</sup>, E. D. Zvantseva<sup>2</sup>, M. M. Milica<sup>3</sup>, C. M. Pashchenko<sup>3</sup>, N. M. Voloshina<sup>3</sup>**

<sup>1</sup>Medical center «COMREC»

Zaporizhzhya, Ukraine

<sup>2</sup>Zaporozhye Regional Clinical Oncology Center

Zaporizhzhya, Ukraine

<sup>3</sup>State Institution «Zaporizhia Medical Academy of post-graduate education Ministry of Health of Ukraine»

Zaporizhzhia, Ukraine

## СОЛИТАРНА ПУХЛИНА ГРУДНОЇ ЗАЛОЗИ У ЧОЛОВІКІВ, КЛІНІЧНИЙ ВИПАДОК

### Breast solitary tumor in men, clinical case

#### Резюме

Приводимо рідке спостереження солитарної фіброзної пухлини грудної залози у чоловіка 74 років. Хворому зроблено ультразвукове обстеження, тонкоігольна аспіраційна пункцийна біопсія, гістологічне дослідження після трепанбіопсії. Лікарі до операції чіткої відповіді з приводу нозології пухлини та її зложісності не дали. Пацієнту проведено оперативне втручання – видалення (ампутація) правої грудної залози з пухлиною. Застосовано імуногістохімічний метод дослідження тканини пухлини, яким був зроблений остаточний патогістологічний висновок – солитарна фіброзна пухлина грудної залози з помірною проліферацією. Даний випадок в котрий раз підтверджує важкість діагностики пухлин такої нозології.

**Ключові слова:** солитарна пухлина, аспіраційна біопсія, грудна залоза.

#### ВСТУП

Солитарна фіброзна пухлина (СФП) грудної залози відноситься до особливої різновидності змішаних сполучнотканинних- фібробластичних і міофібробластичних тканин, з помірною проліферацією сполучнотканинного компоненту і рідким метастазуванням, про яку вперше у XIX столітті зробив опис Е. Wagner, але детальніше про цю пухлину у 1931 році написли Р. Klempener, С. Robin. [4, 13]. Розвиток СФП проходить у двох напрямках добрякісному і зложісному. Причина виникнення СФП невідома але є поодинокі публікації в яких автори пов'язують появу її із гормональними змінами

#### Abstract

We give unusual observation a breast solitary fibrous tumor in a man 74 years old. The patient was undergoing an ultrasound examination, a fine-needle aspiration puncture biopsy, a histology examination after a trepan biopsy. The doctors did not give a clear answer to the surgery about the nosology of the tumor and its malignancy. A surgical intervention was performed – the removal (amputation) of the right breast with the tumor. Immunohistochemical method of tumor tissue research was applied, the final pathohistological conclusion was made – a solitary fibrous breast tumor with medium proliferation. This case once again confirms the severity of the diagnosis of tumors of such a nosology.

**Keywords:** solitary tumor, aspiration biopsy, breast gland.

у чоловіків; з гінекомастією, захворюванням на аденому передміхурової залози, пухлинах яєчок, недостатнім функціонуванням статевих залоз, запаленнях яєчок [10].

Останнім часом виявлено немалу вагу впливу на розвиток СФП генетичних факторів [19]. У 12,5% N. I. Tochigi et al. при СФП спостерігається самозіготна деліятація гена 9 p21 [19]. Частіше всього це відбувається при рецидивуючих СФП. По цим змінам розпізнають СФП двох типів – добрякісні (без деліятації і нерецидивуючі) і зложісні (особи з деліятацією гена 9p21 прихильні до рецидиву [3, 11]. Розповсюдженість пухлини дуже широка, СФП можна зустріти не тільки в легенях, очеревині, плеврі, а також в шлунку,

молочній залозі, орбіті, печінці і т.д. СФП молочної залози зустрічається в онкологічній практиці дуже рідко від усіх пухлин м'яких тканин. У чоловіків зафіковані поодинокі випадки [14].

В міжнародній гістологічній класифікації ВООЗ, від 2013 року на засіданні робочої групи по пухлинам м'яких тканин, в складі міжнародної агенції з вивчення раку (IARC), де в розділі фіброепітеліальних новоутворень, виділена група 8815/1\* фібробластичних та міофібробластичних проміжних, місцево агресивних, рідко метастазуючих пухлин, де були об'єднані солітарна фіброзна пухлина з гемангіоперицитомою, в зв'язку з морфоімунохімічними і молекулярно-генетичними здібностями. Це два варіанта однієї хвороби [16, 17]. В типових випадках, в цій групі виділяють три основні типи солітарної пухлини:

- тип 1: СФП без специфічної гістологічної структури (безструктурна структура Стаута) характеризується великою кількістю товстих неповноцінних колагенових волокон, між ними в щільних просторах лежить невелика кількість витягнутих клітин;

- тип 2: СФП гемангіоперицитоподібний, характеризується гіперцелюлярністю і великою кількістю судин що галузяться;

- тип 3: СФП клітинні, характеризуються великою кількістю клітин у тому числі витягнутої форми що формують структури муарового типу [3, 7].

Клінічна картина СФП не має специфічних ознак окрім місця і органу розташування, веде себе в грудній залозі непомітно, росте повільно, тисне на сусідні тканини, чим звертає на себе увагу. Іноді досягає великих розмірів. Доброїкісні пухлини рецидивують дуже рідко [2].

До сучасних методів діагностики захворювань грудної залози відносять: клінічний, ультразвуковий, мамографічний, магнітно-резонансний, цитологічне дослідження, які не дають можливості підтвердити солітарну новозологію пухлини і її ступінь злоякісності [5]. Тільки морфологічне дослідження, після трепан-біопсії або секторальної резекції грудної залози, надає змогу розпізнати доброїкісна чи злоякісна пухлина [6].

## КЛІНІЧНИЙ ВИПАДОК

Основою цієї статті є випадок СФП в правій грудній залозі у чоловіка 74 років. При зверненні до лікаря, хворий скаржився на виникнення пухлини в правій грудній залозі, яку раніше не помічав.

При клінічному огляді права грудна залоза збільшена, деформована, поверхня її нерівна, шкіра над пухлиною не порушена але є виїмка (симптом площі). При пальпації, тканини грудної залози щільно-еластичні. Пухлина переміщається віднос-

но грудної клітки. В верхньому медіальному квадранті на відстані 5 см від соска, знаходиться пухлина до 4 см в діаметрі, тверда, деформує шкіру, не болить, не переміщається відносно шкіри. В пахвовій області справа пальпується збільшений лімфатичний вузол другого рівня, безболісний с чіткими рівними контурами до 1,5 см. В медичному центрі хворому було виконано ультразвукове обстеження грудних залоз на апараті SONIX OP з енергетичною та кольоровою доплерографією. В правій грудній залозі, в секторі «В» на 14 годині виявлена гіпоекогенна пухлина з чітким нерівним контуром, розміром  $27,93 \times 19,26 \times 36,85$  мм, неоднорідної солідної будови, з анехогенними малими і щільовими лікворняними утворами, великою кількістю інtranodулярних судин і гіперекогенних тканин. Навколо неї спостерігався гіперекогенний ободок (рис. 1).

Під час обстеження пацієнту зроблене цитологічне дослідження, при якому лікарями висловлена думка про листовидну пухлину з ознаками злоякісності (рис. 2). В той же день зроблена трепан-біопсія пухлини правої грудної залози.

В трепан-біопсії знайдено: стовпчики тканини пухлинного походження, побудовані з довгих пучків фібробластоподібних клітин, які дещо хаотично закручуються. Клітини утворюють або витягнуте ядро з щільним грубодисперсним хроматином і гострими кінцями або овальне з просвітленим хроматином і нечіткими ядерцями. Мітози 1–2 на 10 полів зору, атипових мітозів немає, наявні поодинокі клітинні некрози. Межі утвору відсутні, на деяких є прошарки рихлої сполучної тканини. В пухлині присутні судини з чітко сформованою стінкою, в стромі визначається дифузна помірна лімфогістіоплазмоцитарна інфільтрація з домішкою гранулярних лейкоцитів (рис. 3).

Патогістологічний (після трепан-біопсії) висновок: морфологічна будова утвору і імунофенотип його клітин відповідають пухлині мезенхімального походження з невизначенім злоякісним потенціалом. Для визначення морфологічної будови необхідно провести імуногітохімічне (ІГХ) дослідження.

На підставі клінічних, ультразвукових, цитологічних, гістологічних (після трепан-біопсії) обстежень, хворому була виконана ампутація правої грудної залози з біопсією лімфатичного вузла в правій пахвовій області.

При гістологічному дослідженні операційного матеріалу, в тканинах правої грудної залози, було знайдено пухлину світло-сірого кольору, без чітких країв, розміром  $2,5 \times 1,5 \times 1,0$  см. Структура складалася з витягнутих клітин, круглих, з світлою скудною цитоплазмою і великою кількістю волокон з осередками гіалінізації та невеликою кількістю судин з перифокальним склерозом.

В пахвових лімфатичних вузлах структура тканин не порушена має місце виражений ліпо-

матоз, склероз і осередковий гіаліноз.

Був зроблений гістологічний висновок, що видалений операційний матеріал може відповісти солітарній фіброзній пухлині. Для уточнення гістогенезу та злоякісного потенціалу необхідно провести імуногістохімічне (ІГХ) дослідження.

## ОБГОВОРЕННЯ

СФП є одним з найважчих розділів онкоморфології. Це пов'язано з великою кількістю нозологічних форм і їх варіантів гісто- і морфогенезу. Важко провести диференціальний аналіз при присутності дуже близької структури пухлини і її клітинної характеристики, через те, що в пухлинах м'яких тканин між групами доброкісних і злоякісних пухлин, з'явилися: напівзлоякісні пухлини проміжного ступеня злоякісності, міцево деструкційні. Ці пухлини, як правило не метастазують, але вони мають здібність швидко зростати, розповсюджуються мультицентрично і мають велику здатність до рецидиву, навіть при масивних радикальних втручаннях [9, 12, 14]. Клінічно солітарні фіброзні пухлини ростуть повільно безболісно, при ультразвуковому і мамографічному обстеженні мають вигляд фібра-

деномі [8, 14].

Картина розвитку СФП коливається від малих розмірів з чіткими контурами, до великих. Не встановлено рентгенологічних критеріїв, які могли б дати змогу відрізнити доброкісну пухлину від злоякісної. Наявні методи обстежень (рентгенологічні, ультразвукові, цитологічні) не мають достовірних критеріїв діагностики неепітеліальних та фіброепітеліальних пухлин молочних і грудних залоз чоловіків, тому провести диференціальну діагностику між гістологічними варіантами цих новоутворень досить складно [1].

Враховуючи будову пухлини, її агресивність і непередбачуваність до місцевого розповсюдження, стандартом лікування є видалення пухлини на відстані не менше ніж 2 см чистих країв [16].

Є дуже мало публікацій виникнення СФП в грудній залозі у чоловіків і на думку деяких авторів, частіше всього вони пов'язані з появою у них гінекомастії [13]. Етіологія виникнення СФП у нашого пацієнта, може бути виходити із захворюванням на аденому предміхурової залози і видаленні її хірургічним втручанням.

Для обстеження хворого до операційного втручання, був задіяний такий алгоритм обстеження (A).

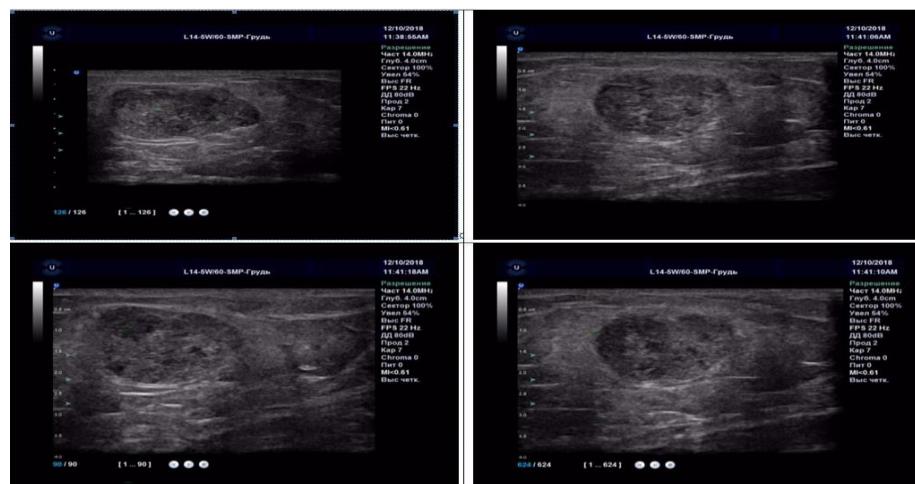


Рис. 1. Ультразвукове обстеження правої грудної залози хворого

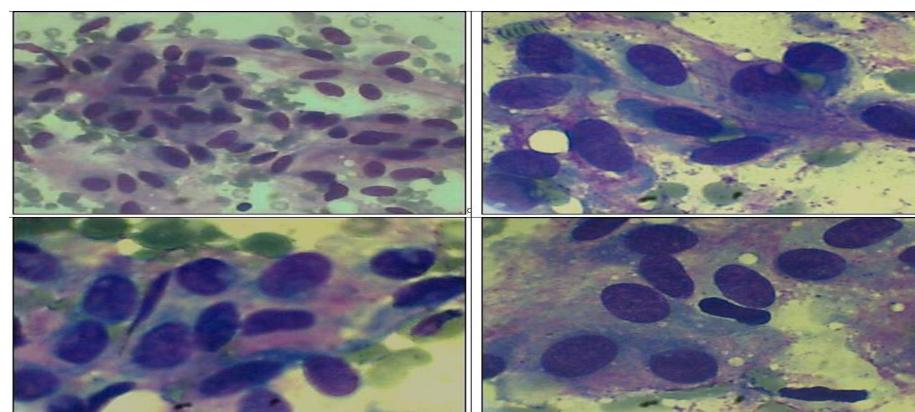


Рис. 2. Цитологічне обстеження матеріалу з пухлини грудної залози хворого

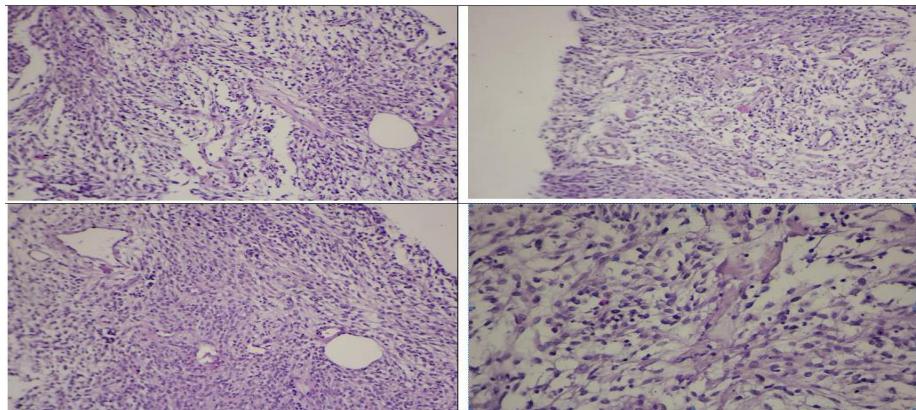
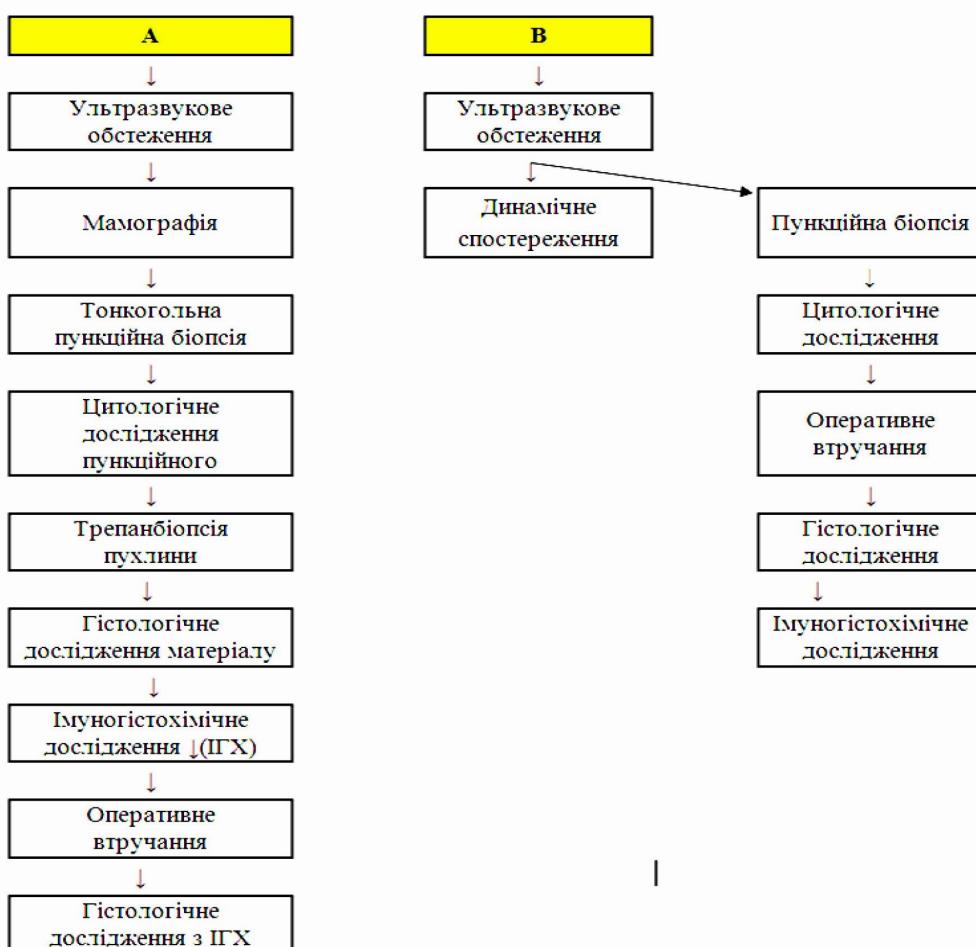


Рис. 3. Гістологічне дослідження матеріалу хворого після трепан-біопсії

## КЛІНІЧНЕ ОБСТЕЖЕННЯ



Такий підхід до обстеження СФП підтверджують і другі автори [2]. В даному випадку клінічне, ультразвукове з доплерографією, цитологічне та гістологічне дослідження, після трепан-біопсії, не дали відповідь до якого типу відноситься пухлина (доброкісного, проміжного, злойкісного) і поставити гістологічний діагноз. Остаточний морфологічний висновок базувався на клінічних, морфологічних та імуногістохімічних дослідженнях. Імуногістохімічне дослідження операційного матеріалу видаленої пухлини виконувалось з застосуванням

таких маркерів як: панцитокератин 1/AE 3 «-», MSA «-», SMA «+», S100, Desmin «-», Vimentin «+», Ki-67 «8%».

Після операції на підставі патогістологічного та імуногістохімічного дослідження був зроблений остаточний висновок: фенотип пухлини відповідає солітарній фіброзній пухлині з помірною проліферативною активністю.

Цей випадок демонструє рідке клінічне спостереження виникнення солітарної фіброзної пухлини у чоловічій грудній залозі і труднощі в постановці морфологічного діагнозу, пов'язаних з рідкістю та

кої нозології хвороби, особливо у чоловіків.

## ВИСНОВКИ

1. Сучасне впровадження імуногістохімічних методів дослідження дає можливість встановити остаточний морфологічний висновок.

2. Необхідно дотримуватись алгоритму обстежень таких хворих (клінічне, ультразву-

кове, мамографічне, МРТ (при необхідності), цитологічне обстеження, трепан-біопсія з імуногістохімічним дослідженням до оперативного втручання і планове морфологічне дослідження видаленої пухлини після операції.

3. При тяжких діагностичних випадках, а також при не типових клінічних проявах хвороби, потрібно застосовувати цитогенетичне та молекулярногенетичне обстеження матеріалу пухлини.

## ЛІТЕРАТУРА

1. Vesnin AG. Radiological diagnosis of soft tissues. Prakticheskaya onkologiya. 2004; 5 (4): 243–249.
2. Danchik YES, Vorotnikov IK, Bykova AV, Lyubchenko LN. Breast lumps. Zhurnal «Zlokachestvennyye opukholi». 2012; 2: 40–43.
3. Dvorakovskaya IW, Ariel BM, Platonov IP et al. Solitary fibroid tumor of the chest cavity. Pulmonologiya. 2014; 5: C. 20–26.
4. Donchik YES, Vorotnikov IK, Bykova AV, Lyubchenko LN. Breast leaf-like tumors. Zhurnal «Zlokachestvennyye opukholi». 2012; 2: 40–43.
- 5.. Zakiryakhodzhayev AD, Shirokikh IM, Kharchenko NV et al. Phyloid mammary tumors, current state of the problem. Issledovaniye i praktika v meditsine. 2017; 4 (2): 13–22.
6. Kaprin AD, Kostin AA, Vorobyev NV et al. Solitary fibrous tumor of the kidney. Issledovaniye i praktika v meditsine. 2014; 1 (1): 74–79.
7. Kochergina NV, Korzhenkov GP, Pritula SI et al. Preoperative diagnosis of leaf-shaped tumors of the mammary glands. Meditsinskaya vizualizatsiya. 2001; 1: 89–92.
8. Pavlov KA, Dubova EA, Schegolev AI, Karmazanovsky GG. Solitary fibrous pleural tumor. Klinicheskaya interventionsnaya radiologiya. 2008; 2 (4): 67–79.
9. Polynovsky AV, Rusalov AO, Kuzmichev DV et al. A successful case of treating a patient with a solitary pelvic fibrous tumor (clinical observation). Onkologicheskaya koloproktologiya. 2017; 7 (2): 12–17.
10. Frank GA. Problems of morphological classification and diagnosis of soft tissue tumors. Prakticheskaya onkologiya. 2004; 5 (4): 231–236.
11. Bahrami A, Lee S, Schaefer IM et al. TERT promoter mutations and prognosis in solitary fibrous tumor. Mod Pathol. 2016; 29 (12): 1511–1522.
12. Khater N, Khauli R, Shahait M et al. Solitary Fibrous Tumors of the Kidneys: Presentation, Evaluation, and Treatment. Urol Int. 2013; 91: 373–383. DOI: 10.1159/000354394)
13. Klempner P, Coleman BR. Primary neoplasm report of five cases. Am J Ind Med. 1992; 22 (1): 1–31.
14. Park MS, Araujo DM. New insights into the hemangiopericytoma/solitary fibroblast tumor spectrum of tumors. Curr Opin Oncol. 2009; 21 (4): 327–331. DOI: 10.1097/CCO.0b013e32832c9532.
15. Li XM, Reng J, Zhou P et al. Solitary fibrous tumors in abdomen and pelvis: imaging characteristics and radiologic-pathologic correlation. World J Gastroenterol. 2014; 20 (17): 5066–5073. DOI: 10.3748/wjg.v20.i17.5066
16. Park SB, Park YS Kim JK et al. Solitary fibrous tumor of the genitourinary tract. AJR. 2011; 196: W132–W137. DOI: 10.2214/AJR.09.3787.
17. NCCN Clinical Practice Guidelines in oncology. Version 1.2016. www.nccn.org. 2017.
18. Tochigi NI., Attanoos R, Chirieac LR et al. p16 deletion in sarcomatoid tumors of the lung and pleura. Arch Pathol Lab Med. 2013; 137 (5): 632–636. DOI: 10.5858/arpa.2012-0108-OA.
19. Okike N, Bernatz PE, Wolner LB. Localized mesothelioma of the pleura: benign and malignant variants. J Thorac Cardiovasc Surg. 1978; 75 (3): 368–372.

Стаття надійшла до редакції 25.03.2019