

## СКЛЕРОЗИРАЈУЋИ ХЕМАНГИОМ ПЛУЋА – ПРИКАЗ БОЛЕСНИКА

Јелена СТОЈШИЋ, Бранислава МИЛЕНКОВИЋ, Јелена РАДОЈИЧИЋ, Малина ПЕРЧИНКОВСКИ

Институт за плућне болести и туберкулозу, Клинички центар Србије, Београд

## КРАТАК САДРЖАЈ

**Увод** Склерозирајући хемангиом је бенигни тумор, познат и под именом пнеумоцитом. Јавља се нешто чешће код жена старијег животног доба и обично је солитаран. На основу хистолошких одлика, склерозирајући хемангиом може бити: папиларан, склерозан, солидан и хеморагичан.

**Приказ болесника** Болесница стара 68 година примљена је у Институт за плућне болести и туберкулозу Клиничког центра Србије у Београду ради испитивања радиолошки дијагностиковане лезије у виду новчића (енгл. *coin-like*) у доњем режњу десног плућног крила. После клиничког испитивања урађена је доња десна лобектомија. У паренхиме плућа је уочен јасно ограничен чвор пречника око 35 *mm*, грађен од два типа туморских ћелија истоветног имунофенотипа, што одговара склерозирајућем хемангиому. Мултипли облик тумора је искључен радиографским испитивањима урађеним после операције. Две године после хируршког лечења код болеснице нема знакова рецидива болести.

**Закључак** Код болесника с радиографски уоченим лезијама у виду новчића треба размотрити могућност склерозирајућег хемангиома, како солитарног, тако и мултиплог облика.

**Кључне речи:** пнеумоцитом; хемангиом; лезија у виду новчића (*coin-like*); неоплазма плућа

## УВОД

Склерозирајући хемангиом је богато васкуларизован тумор који је овај назив добио јер се сматрало да потиче од ендотелних ћелија. Пнеумоцитом је новији и прикладнији назив јер је у складу са сазнањем да овај тумор води порекло од примитивног епитела дисајних органа. Јавља се углавном код старијих жена [1]. Најчешће је солитаран, а знатно ређе мултиплог типа [2]. На основу хистолошких одлика, склерозирајући хемангиом може бити: папиларан, склерозан, солидан и хеморагичан [3].

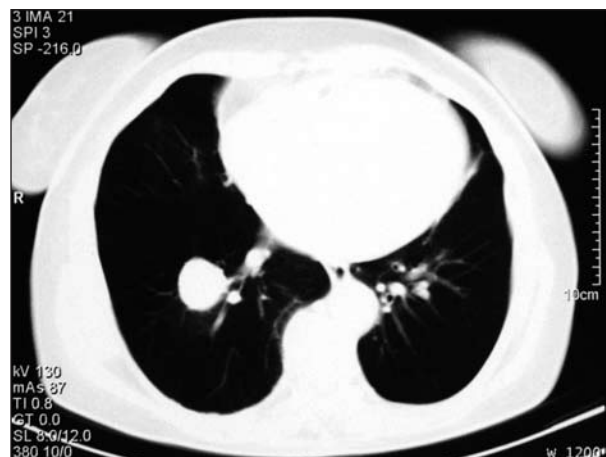
## ПРИКАЗ БОЛЕСНИКА

Болесница стара 68 година, непушач, упућена је на болничко лечење због једномесечних болова у десној половини грудног коша и повремених хемоптизија. На радиограму грудног коша је у доњем режњу десног плућног крила запажена округла, јасно ограничена, интензивна сенка величине 35×30 *mm*, што је одговарало тзв. лезији у облику новчића (енгл. *coin-like*). Десни хилус је био волуминознији, десна хемидијафрагма подигнута, десни костодијафрагмни синус затворен, а сенка срца увећана (Слика 1). Компјутеризованом томографијом грудног коша дијагностикована је јасно ограничена сенка у доњем режњу десног плућа, на граници предњег и латеро-базалног сегмента. У туморској сенци су се истицале ситне калцификације. У структурама средогруђа нису уочени увећани лимфни чворови (Слика 2). Бронхоскопски налаз је био нормалан, а хистолошким прегледом биопсије слузнице бронха нису уочени морфолошки елементи тумора. Транскутана биопсија плућа иглом није рађена због неприступачне локализације патолошке промене.

Изведена испитивања су указивала на бенигни солитарни тумор плућа. Ради хистолошке потврде природе промене, урађена је торакотомија. Током операције се наишло на солидан, склеротичан тумор жу-



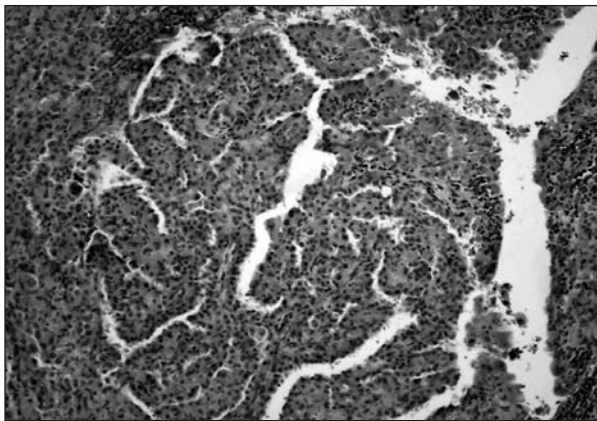
СЛИКА 1. Радиограм грудног коша.  
FIGURE 1. Chest X-ray.



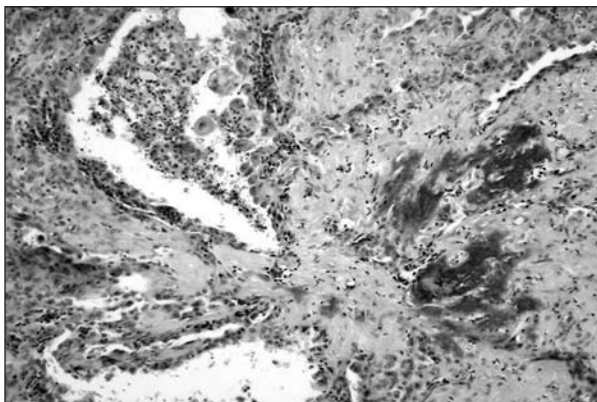
СЛИКА 2. Налаз компјутеризоване томографије грудног коша.  
FIGURE 2. Chest CT scan.

те боје, који је делом био подливен крвљу. Налазио се централно, испод плеуре, са највећим пречником од 35 *mm*. Регионална лимфаденопатија није забележена.

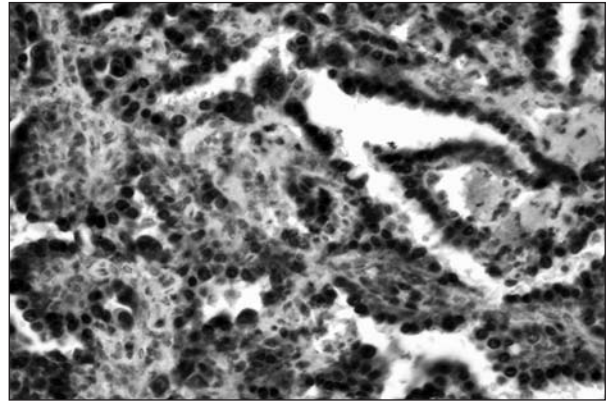
Хистолошким прегледом исечака тумора дијагностикован је склерозирајући хемангиом плућа, у којем доминира папиларни тип пролиферације тумора. Неоплазма се састојала од две врсте пролиферисаних ћелија различитог облика, без атипичности једра. Кубичне ћелије су прекривале папиле, док су се округле ћелије налазиле унутар строге папиле (Слика 3). Фокуси калцификата су се налазили у хијалинизованој строми тумора (Слика 4). Крвни судови проширеног лумена су доминирали у једном делу тумора, а између њих су се налазили хемосидерофаги, пенушави хистиоцити или кристали холестерола, што је тумору давало жуту пребојеност и утисак фокалне подливености крвљу. Имунофенотипизацијом је доказано да су обе врсте туморских ћелија – и кубичне, и округле – осетљиве на иста моноклонска антитела, типична за пнеумоците. Експримирана моноклонска антитела су: *AE1/AE3*, тиреоидни транскриптивни фактор 1 (*TTF-1*) (Слика 5), епителни мембрански антиген (*EMA*), *CA15-3*, карцином ембрионални антиген (*CEA*) и сурфактант апопротеин А.



**СЛИКА 3.** Папиларни начин раста тумора: кубичне ћелије прекривају фиброваскуларну стому и овалне ћелије (*H&E*,  $\times 20$ ).  
**FIGURE 3.** Papillary growth pattern of tumour: cuboidal cells cover fibrovascular core and groups of ovoid cells (*H&E*,  $\times 20$ ).



**СЛИКА 4.** Калцификати у хијалинизованој везивној строми тумора испод кубичних ћелија (*H&E*,  $\times 10$ ).  
**FIGURE 4.** Calcifications in hyalinised fibrous stroma of tumour under cuboidal cells (*H&E*,  $\times 10$ ).



**СЛИКА 5.** Кубичне ћелије на површини папила морфолошки и имунохистохемијски подсећају на пнеумоците (нуклеарна сензитивност, *TTF-1*,  $\times 20$ ).  
**FIGURE 5.** Cuboidal cells on papillary surface morphologically and immunohistochemically display pneumocytes (nuclear sensitivity, *TTF-1*,  $\times 20$ ).

Болови и хемоптизије су престали после доње десне лобектомије, а на контролним прегледима није уочен рецидив болести, нити је забележена малигна алтерација тумора.

## ДИСКУСИЈА

Склерозирајући хемангиом припада групи ретких тумора плућа који не рецидивира и малигно не алтерираше [3]. Овај назив не одговара пореклу туморских ћелија јер оне потичу од примитивних ћелија респираторног типа, а не од ендотелних ћелија [1-3].

Резултати испитивања болеснице која је приказана у раду упућивали су на бенигни тумор десног плућа. Уочене особине тумора (јасна ограниченост, пребојеност) указивале су на бенигни и добро прокрвљени тип [4, 5]. Хистолошка анализа хируршког материјала потврдила је ову клиничку сумњу, јер су се њоме приказале две врсте ћелија: овалне ћелије еозинофилне цитоплазме, без атипизма једра, дискретног једарца, као и кубичне, често вишеједарне, светле и вакуолисане цитоплазме. Бојење хематоксилин-еозином није било довољно прецизно за диференцијално дијагностиковање између алвеоларног аденома, светлоћелијског тумора плућа (тзв. *sugar* тумор или тумор који личи на шећер) и склерозирајућег хемангиома [3].

Алвеоларни аденом плућа настаје пролиферацијом пнеумоцита и глаткомишићних ћелија, које су имунореактивне са *TTF-1*, *AE1/AE3*, сурфактант апопротеином А и *CEA*, односно са виментином и алфа глаткомишићним актином [3, 6, 10]. Светлоћелијски тумор плућа или тумор који личи на шећер највероватније настаје пролиферацијом периваскуларних епителоидних ћелија и садржи две групе крупних ћелија – светле или еозинофилне цитоплазме, богате гликогеном. Појединачне ћелије овог тумора аберантно експримирају протеин *S-100* и *HMB-45*, али не и *AE1/AE3*. Између ћелија тумора су пролиферисали крвни судови типа синуса [3, 11]. Склерозирајући хемангиом чи-

не кубичне и округле ћелије, чији је имунофенотип истовестан, експримирајући *TTF-1*, *AE1/AE3*, сурфактант апопротеин А, *CA15-3* и *EMA* [6-9]. Тумор може бити папиларан, склерозан, солидан и хеморагичан, у зависности од доминантног начина раста његових ћелија. Имунофенотипизацијом тумора приказане болеснице експримирана су следећа моноклонска антитела: *AE1/AE3*, *TTF-1*, *EMA*, *CA15-3*, *CEA* и сурфактант апопротеин А, што је потврдило дијагнозу склерозирајућег хемангиома. Изведена хируршка интервенција је представљала оптималан вид лечења солитарног пнеумоцитомата [12].

Код радиолошког налаза лезије у облику новчића у плућима треба размишљати и о склерозирајућем хемангиому плућа. За прецизно постављање дијагнозе ове болести неопходна је имунохистохемијска анализа. Хируршка ексцизија солитарног или мултиплог облика тумора сматра се оптималним терапијским режимом.

## ЛИТЕРАТУРА

- Laga CA, Allen T, Ostrowski M, Cagle PT. Sclerosing hemangioma. In: Cagle PT, editor; Allen TC, Barrios B, Bedrossian C, et al, assoc. editors. Color Atlas and Text of Pulmonary Pathology. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2005. p.181-3.
- Tomoyuki H, Junji Y, Mitsuyo N, Genichiro I, Yutaka N, Kanji N. Multiple sclerosing hemangiomas with a 10-year history. Jpn J Clin Oncol 2005; 35(1):37-9.
- Travis WD, Brambilla E, Muller-Hermelink HK, Harris CC, editors. World Health Organisation Classification of Tumours. Pathology and Genetics of the Lung, Pleura, Thymus and Heart. Lyon: IARC Press; 2004.
- Hiroshi K, Akiteru G, Manabu M, Jun N, Toshiro N, Masashi F. Sclerosing Hemangioma of the lung with cystic appearance. Jpn J Clin Oncol 2003; 33:360-3.
- Neuman J, Rosioreanu A, Schuss A, et al. Radiology-pathology conference: sclerosing hemangioma of the lung. Clin Imaging 2006; 30(6):409-12.
- Gibbs AR, Thunnissen FBMJ. Histological typing of lung and pleural tumours. J Clin Pathol 2001; 54:498-9.
- Yamazaki K. Type-II pneumocyte differentiation in pulmonary sclerosing hemangioma: ultrastructural differentiation and immunohistochemical distribution of lineage-specific transcription factors (*TTF-1*, *HNF-3 alpha*, and *HNF-3 beta*) and surfactant proteins. Virchows Arch Pathol Anat Physiol Klin Med 2004; 445(1):45-53.
- Enhua W, Dong L, Yan W, Guangping W, Ximing Y. Immunohistochemical and ultrastructural markers suggest different origins for cuboidal and polygonal cells in pulmonary sclerosing hemangioma. Hum Pathol 2004; 35:503-8.
- Halldorsson A, Dissanaik S, Kaye KS. Alveolar adenoma of the lung: a clinicopathological description of a case of this very unusual tumour. J Clin Pathol 2005; 58:1211-4.
- Illei PB, Rosai J, David S, Klimstra SD. Expression of thyroid transcription factor-1 and other markers in sclerosing hemangioma of the lung. Arch Pathol Lab Med 2001; 125(10):1335-9.
- Gora-Gebka M, Anna Liberek A, Bako W, Szumera M, Korzon M, Jaskiewicz K. The "sugar" clear cell tumor of the lung – clinical presentation and diagnostic difficulties of an unusual lung tumor in youth. J Pediatr Surg 2006; 41(6):27-9.
- Jungraithmayr W, Eggeling S, Ludwig C, Kayser G, Passlick B. Sclerosing hemangioma of the lung: A benign tumour with potential for malignancy? Ann Thorac Cardiovasc Surg 2006; 12(5):352-4.

## PULMONARY SCLEROSING HAEMANGIOMA – CASE REPORT

Jelena STOJŠIĆ, Branislava MILENKOVIĆ, Jelena RADOJČIĆ, Malina PERČINKOVSKI  
Institute of Lung Diseases and Tuberculosis, Clinical Centre of Serbia, Belgrade

**INTRODUCTION** Sclerosing haemangioma is a benign tumour, also known under the term "pneumocytoma". It is mostly notified in older females and is usually solitary. According to the histological appearance, sclerosing haemangioma could be: papillary, sclerotic, solid and haemorrhagic.

**CASE OUTLINE** A 68-year old female patient was radiologically diagnosed with coin lesion in the lower right lobe. Lower right lobectomy was performed after clinical investigations. In pulmonary parenchyma, there was found a well circumscribed node of up to 35 mm in maximal diameter. The tumour was histologically established as sclerosing haemangioma, containing two types of cells with the same immunophenotype. A multiple type of tumour was excluded by postoperative radiological examinations. Two years after surgery, the patient is without disease recurrence.

**CONCLUSION** Sclerosing haemangioma should be considered in patients with radiologically diagnosed "coin-like" lesions of a solid as well as multiple type.

**Key words:** pneumocytoma; haemangioma; coin lesion; pulmonary neoplasm

Jelena STOJŠIĆ  
Institut za plućne bolesti i tuberkulozu  
Klinički centar Srbije  
Višegradska, 26, 11000 Beograd  
Tel.: 011 3635 441  
Faks: 011 269 1591  
E-mail: dr.jelenastoj@sezampro.yu