

DOI: 10.17650/2222-1468-2021-11-3-104-108



Клинический случай лечения пациента с зернистоклеточной опухолью гортани (опухолью Абрикосова)

З.А.-Г. Раджабова, М.А. Котов, М.А. Раджабова, О.И. Пономарева, А.С. Артемьева, В.А. Кушнарв

ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр онкологии им. Н.Н. Петрова» Минздрава России; Россия, 197758 Санкт-Петербург, пос. Песочный, ул. Ленинградская, 68

Контакты: Замира Ахмед-Гаджиевна Раджабова radzam@mail.ru

Цель исследования – представить клинический случай радикального хирургического лечения зернистоклеточной опухоли гортани с инвазией в перстневидный хрящ и щитовидную железу и показать важность патоморфологической диагностики.

Клиническое наблюдение. Женщина европейского происхождения, 47 лет, в течение 8 мес отмечала прогрессирующую осиплость голоса. Проводился анализ клинических, лабораторных, радиологических и патоморфологических данных. На предоперационном этапе опухоль была верифицирована как плоскоклеточная высокодифференцированная карцинома (стадия cT4aN0M0). При эндоскопическом исследовании обнаружена экзофитная часть новообразования с инфильтративным основанием и мелкобугристой поверхностью, розоватого цвета, с явлениями дискератоза и признаками инвазии в хрящ. В ходе патоморфологического исследования биоптата выявлен плоскоклеточный высокодифференцированный ороговевающий рак. Выполнены ларинго- и тиреоидэктомия с селективной шейной лимфодиссекцией. По данным патоморфологического и иммуногистохимического исследований операционного материала верифицирована зернистоклеточная опухоль гортани (опухоль Абрикосова), удаленная в пределах здоровых тканей (R0).

Заключение. Представленный клинический случай такой редкой патологии, как зернистоклеточная опухоль гортани, показывает важность патоморфологической диагностики и использования дополнительных иммуногистохимических методов исследования для постановки точного диагноза и дифференциальной диагностики плоскоклеточной карциномы и опухоли Абрикосова.

Ключевые слова: зернистоклеточная опухоль, гранулярноклеточная опухоль, опухоль Абрикосова, опухоль гортани

Для цитирования: Раджабова З.А.-Г., Котов М.А., Раджабова М.А. и др. Клинический случай лечения пациента с зернистоклеточной опухолью гортани (опухолью Абрикосова). Опухоли головы и шеи 2021;11(3):104–8. DOI: 10.17650/2222-1468-2021-11-3-104-108.

A clinical case of treatment of a patient with laryngeal granular cell (Abrikossoff) tumor

Z.A.-G. Radzhabova, M.A. Kotov, M.A. Radzhabova, O.I. Ponomareva, A.S. Artemieva, V.A. Kushnarev

N.N. Petrov National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia; 68 Leningradskaya St., Pesochnyy Settlement, Saint Petersburg 197758, Russia

Contacts: Zamira Akhmed-Gadzhievna Radzhabova radzam@mail.ru

The study objective – present a clinical case of radical surgical treatment of a laryngeal granular cell tumor with invasion of cricoid cartilage and thyroid gland and show the importance of pathomorphological diagnosis.

Case report. A 47-year-old woman of European origin complained of progressive hoarseness that lasted for 8 months. We analyzed her clinical, laboratory, radiological, and pathomorphological data. At the preoperative stage, the tumor was classified as well differentiated squamous cell carcinoma (stage cT4aN0M0). Endoscopic examination revealed the exophytic part of the tumor with an infiltrative base and tuberos surface, pinkish, with signs of dyskeratosis and tumor invasion to the cartilage. Pathomorphological examination of biopsy specimens demonstrated well differentiated keratinizing squamous cell carcinoma. The patient has undergone laryngectomy, thyroidectomy, and selective cervical lymph node dissection. Pathomorphological and immunohistochemical examinations of surgical material verified granular cell tumor of the larynx (Abrikosov's tumor) that was excised within healthy tissues (R0).

Conclusion. The presented clinical case of such a rare pathology as a granular cell tumor of the larynx shows the importance of pathomorphological diagnosis and the use of additional immunohistochemical research methods for making an accurate diagnosis and differential diagnosis of squamous cell carcinoma and Abrikossoff tumor.

Kew words: granular cell tumor, Abrikossoff tumor, laryngeal tumor

For citation: Radzhabova Z.A.-G., Kotov M.A., Radzhabova M.A. et al. A clinical case of treatment of a patient with laryngeal granular cell (Abrikossoff) tumor. *Opukholi golovy i shei* = Head and Neck Tumors 2021;11(3):104–8. (In Russ.). DOI: 10.17650/2222-1468-2021-11-3-104-108.

Введение

Зернистоклеточная (гранулярноклеточная) опухоль (опухоль Абрикосова) относится к редким новообразованиям, предположительно нейроэктодермального происхождения [1]. В более чем 50 % случаев она располагается в области головы и шеи [2, 3]. В гортани данная опухоль встречается в 3–10 % всех случаев заболевания [4].

Опухоль Абрикосова можно обнаружить в любой части тела, но в основном она локализуется в области головы и шеи [2]. Данный вид новообразований имеет схожую гистологическую структуру с плоскоклеточной карциномой, поскольку поражение часто проявляется псевдоэпителиоматозной гиперплазией, а в соединительной ткани обнаруживаются островки эпителия. Это может вызвать затруднение при постановке диагноза [5]. Зернистоклеточная опухоль и плоскоклеточный рак имеют несколько общих гистологических признаков: поверхностную псевдоэпителиоматозную гиперплазию и отсутствие нормальных митозов [6], что также усложняет дифференциальную диагностику. В ряде случаев это приводит к необоснованному и травматичному лечению. Иммуногистохимическое исследование позволит уточнить гистогенез опухоли [5].

Мы представляем клинический случай хирургического лечения зернистоклеточной опухоли гортани с разрушением хрящей, которая по результатам предоперационного обследования трактовалась как местно-распространенная плоскоклеточная карцинома.

Клинический случай

Женщина европейского происхождения, 47 лет. В течение 18 мес отмечала прогрессирующую осиплость голоса. При осмотре шеи патологии не выявлено.

Результаты эндоскопического исследования гортани: инфильтрация голосовых складок, преимущественно справа, с явлениями дискератоза, инфильтративные изменения передней комиссуры с переходом на надгортанник и переднюю часть подголосового отдела. В этом отделе обнаружена экзофитная часть опухоли с инфильтративным основанием и мелкобугристой поверхностью, розоватого цвета, с явлениями дискератоза и признаками инвазии в хрящ.

При патоморфологическом исследовании биоптата выявлены фрагменты слизистой оболочки, выстланной многослойным плоским неороговевающим эпителием

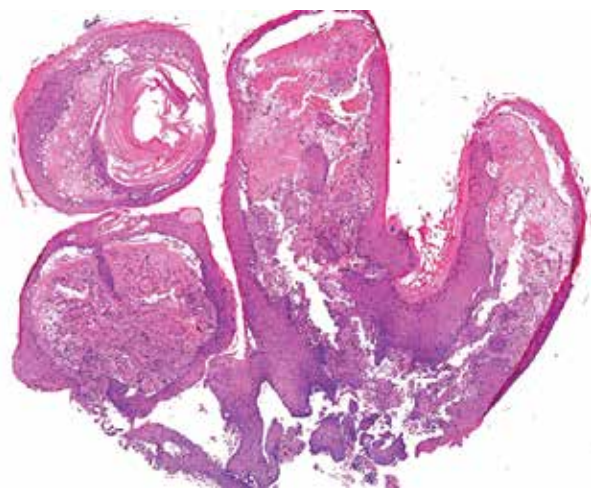


Рис. 1. Микропрепарат биоптата опухоли гортани, окраска гематоксилином и эозином. $\times 4$

Fig. 1. Examination of a biopsy of a laryngeal tumor, hematoxylin and eosin staining. $\times 4$.

с реактивными изменениями. Наблюдается псевдоэпителиоматозная гиперплазия с увеличением ядерно-цитоплазматического соотношения в клетках (рис. 1). Процесс верифицирован как высокодифференцированный плоскоклеточный ороговевающий рак. Иммуногистохимическое исследование не проводилось в связи с недостаточным количеством материала.

По данным магнитно-резонансной томографии (МРТ) мягких тканей шеи с внутривенным контрастированием выявлен нечетко очерченный опухолевый инфильтрат, формирующий бугристые экзофитные разрастания (рис. 2). Опухоль размерами $12 \times 13 \times 17$ мм распространяется на 4 мм на передние отделы голосовых складок и подголосовую полость, разрушает перстневидный хрящ по средней линии. Патологический процесс охватывает подязычные мышцы и перешеек щитовидной железы (проникает на глубину 5 мм).

Данные ультразвукового исследования лимфатических узлов шеи и КТ грудной и брюшной полостей не подтвердили наличия метастазов, что позволило определить стадию опухолевого процесса, согласно 7-му изданию руководства Американского объединенного комитета по исследованию рака (American Joint Committee on Cancer, AJCC) и международной классификации TNM (Tumor, Nodus and Metastasis) 8-го пересмотра, как cT4aN0M0. После обсуждения данного клинического случая на заседании



Рис. 2. Магнитно-резонансная томография мягких тканей шеи с внутривенным контрастированием: а — режим T1, аксиальная проекция. Опухоль гортани с разрушением перстневидного хряща и выходом в мягкие ткани; б — режим T2, аксиальная проекция. Внутрисветовая часть первичной опухоли (экстраларингеальный вид), контур хряща отсутствует; в — сагиттальная проекция, T2. Первичная опухоль

Fig. 2. Contrast-enhanced magnetic resonance images of soft tissue of the neck: а — T1-weighted image, axial view. Laryngeal tumor with destructed cricoid cartilage invading soft tissue; б — T2-weighted image, axial view. Intraluminal part of the primary tumor (extralaryngeal view); no cartilage contour; в — T2-weighted image, sagittal view. Primary tumor

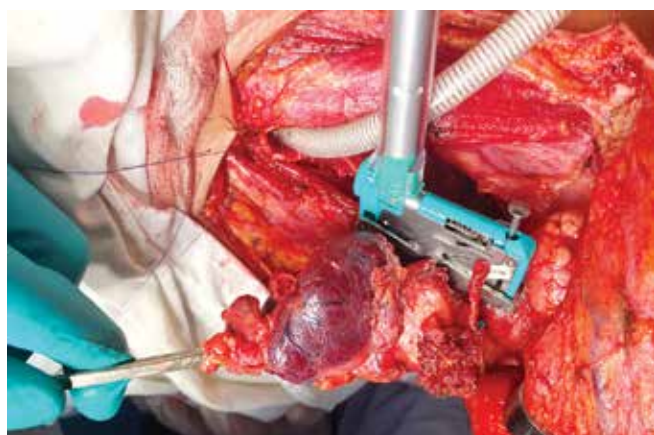


Рис. 3. Расширенная ларингэктомия

Fig. 3. Extended laryngectomy

мультидисциплинарной комиссии в соответствии с мировыми и отечественными клиническими рекомендациями пациентке выполнено хирургическое лечение: ларингэктомия (рис. 3), тиреоидэктомия и селективная шейная лимфодиссекция (IV, VI и VII уровни).

Послеоперационный период протекал без осложнений. Дренажи с области послеоперационной раны на шее были удалены на 7-е сутки. Питание пациентки в течение 5 сут после операции осуществлялось парентерально, через периферическую вену (периферический кативен — 1800 мл/сут), на 6–7-е сутки — через назогастральный зонд. В связи с отсутствием признаков несостоятельности шва гортаноглотки зонд удален на 7-е сутки после хирургического лечения. Пациентка переведена на пероральное питание.

По данным патоморфологического исследования операционного материала (рис. 4) верифицирована зернисто-клеточная опухоль гортани размером 1,5 см, разрушающая щитовидный хрящ и распространяющаяся на мягкие

ткани, окружающие гортань. Края резекции вне опухоли. Метастазы в лимфатических узлах отсутствовали. Результаты иммуногистохимического исследования: S100 положителен, TFE-3, HMB-45, CD56, мультицитокератин (AE1/AE3) отрицательны. Экспрессия белка Ki-67 составляет 1 %.

Спустя 1 мес после хирургического лечения пациентке выполнена контрольная МРТ мягких тканей шеи с внутривенным контрастированием (рис. 5). Данных, свидетельствующих о рецидиве, не получено.

Обсуждение

Зернистоклеточная опухоль впервые была описана в 1926 г. советским врачом-патологоанатомом, академиком А.И. Абрикосовым [7]. Наиболее часто данный вид новообразований встречается в области головы и шеи [2, 3]. В гортани зернистоклеточная опухоль локализуется в менее чем 10 % случаев [4].

В представленном клиническом случае в ходе патоморфологического исследования биоптата были выявлены псевдоэпителиоматозная гиперплазия и увеличение ядерно-цитоплазматического соотношения в клетках. Эти признаки также характерны для плоскоклеточной карциномы [5], что затрудняет постановку диагноза. В то же время отсутствие ядерной гиперплазии и полиморфизма и наличие зернистых клеток позволяют провести дифференциальную диагностику [6]. Наличие окрашивания при иммуногистохимическом исследовании S100 SOX10, CD68 [8], NSE, CD56 и EMA позволяет дифференцировать зернистоклеточную опухоль и плоскоклеточный рак. В представленном клиническом случае для этих целей использовались маркеры S100 и CD56. Экспрессия маркера Ki-67, которая прямо коррелирует с пролиферативной активностью клеток, позволяет косвенно сделать вывод о злокачественности опухолей, имеющих высокий

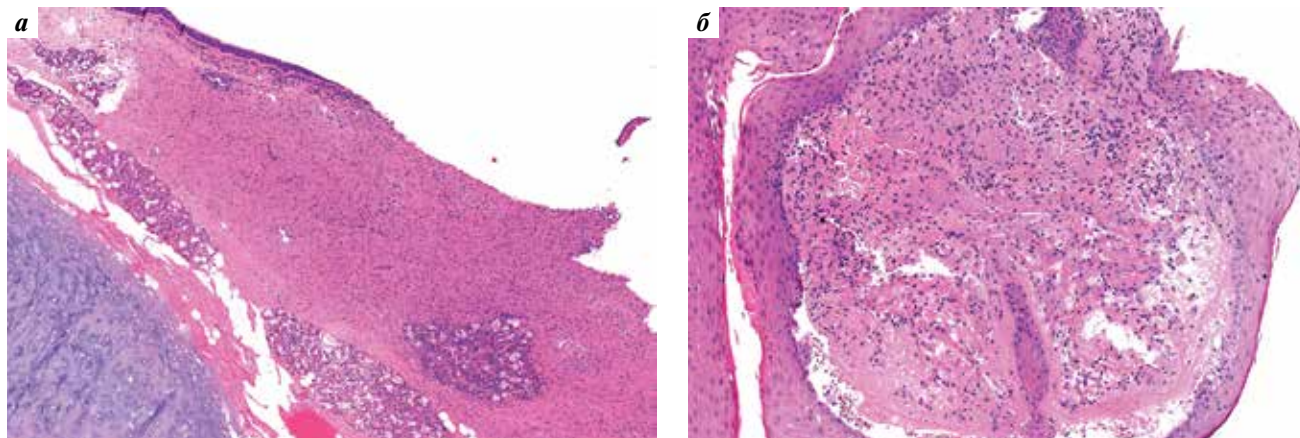


Рис. 4. Микропрепарат гортани, окраска гематоксилином и эозином: а — $\times 4$; б — $\times 10$. Зернистоклеточная опухоль гортани. Выявляются крупные эозинофильные клетки с зернистым строением цитоплазмы

Fig. 4. Examination of the larynx specimen, hematoxylin and eosin staining: а — $\times 4$; б — $\times 10$. Granular cell tumor of the larynx. Large eosinophilic cells with a granular structure of the cytoplasm

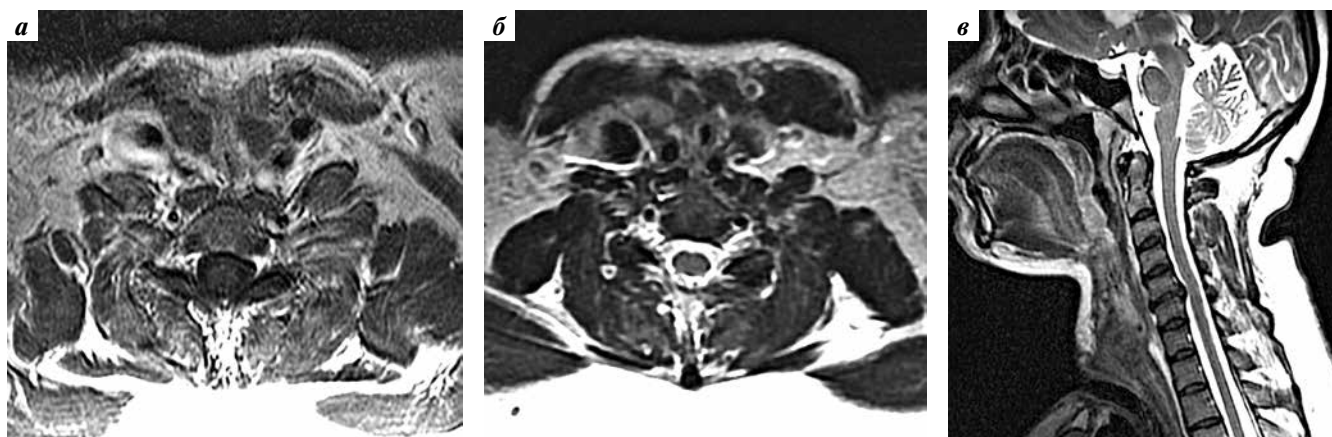


Рис. 5. Магнитно-резонансная томография мягких тканей шеи с внутривенным контрастированием, выполненная через 1 мес после хирургического лечения: а — режим T1, аксиальная проекция. Серомы в ложе щитовидной железы; б — режим T2, аксиальная проекция. Область ложа удаленной опухоли, сформированная глотка, рецидива нет; в — режим T2, сагиттальная проекция. Данных, подтверждающих рецидив опухоли, нет

Fig. 5. Contrast-enhanced magnetic resonance images of soft tissue of the neck made 1 month postoperatively: а — T1-weighted image, axial view. Seromas in the bed of the thyroid gland; б — T2-weighted image, axial view. Bed of the removed tumor, formed pharynx, no recurrence; в — T2-weighted image, sagittal view. No evidence of tumor recurrence

индекс пролиферации. При оценке данного индекса также учитываются морфологические особенности и показатели экспрессии других иммуногистохимических маркеров.

Гистологическое исследование операционного материала выявило отрицательные края резекции. По данным литературы, вероятность локального рецидива при отрицательных краях резекции составляет 2–3 % [10], а при позитивных — 21 % [11].

Заключение

Представленный клинический случай такой редкой патологии, как зернистоклеточное новообразование гортани, демонстрирует важность патоморфологической диагностики и использования дополнительных иммуногистохимических методов исследования для постановки точного диагноза и дифференциальной диагностики плоскоклеточной карциномы и опухоли Абрикосова.

Л И Т Е Р А Т У Р А / R E F E R E N C E S

1. Sobel H.J., Marquet E. Granular cells and granular cell lesions. *Pathology Annual* 1974;9:43.
2. Berkowitz S.F., Hirsh B.C., Vonderheid E. Granular cell tumor: a great masquerader. *Cutis* 1985;35(4):355–6.
3. Strong E.W., McDivitt R.W., Brasfield R.D. Granular cell myoblastoma. *Cancer* 1970;25(2):415–22. DOI: 10.1002/1097-0142(197002)25:2<415:aid-cncr2820250221>3.0.co;2-t.
4. Lazar R.H., Younis R.T., Kluka E.A. et al. Granular cell tumor of the larynx: report of two pediatric cases. *Ear Nose Throat J* 1992;71(9):440–3.
5. Cree I.A., Bingham B.J.G., Ramesar K.C.R.B. Granular cell tumour of the larynx. *J Laryngol Otol* 1990;104(2):159–61. DOI: 10.1017/s0022215100112162.
6. Robb P.J., Girling A. Granular cell myoblastoma of the supraglottis. *J Laryngol Otol* 1989;103(3):328–30. DOI: 10.1017/s0022215100108849.
7. Abrikosoff A. Myoma, starting with the discretionary skeletal muscles. *Virchows Arch Pathol Anat Physiol Klin Med* 1926;260(1):215–33.
8. Le B.H., Boyer P.J., Lewis J.E., Kapadia S.B. Granular cell tumor: immunohistochemical assessment of inhibin- α , protein gene product 9.5, S100 protein, CD68, and Ki-67 proliferative index with clinical correlation. *Arch Pathol Lab Med* 2004;128(7):771–5. DOI: 10.1043/1543-2165(2004)128<771: GCTIAO>2.0.CO;2.
9. Gurzu S., Ciortea D., Tamasi A. The immunohistochemical profile of granular cell (Abrikosoff) tumor suggests an endomesenchymal origin. *Archives of dermatological research*. 2015;307(2):151–7. DOI: 10.1007/s00403-014-1505-3.
10. Compagno J., Hyams V.J., Ste-Marie P. Benign granular cell tumors of the larynx: a review of 36 cases with clinicopathologic data. *Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology* 1975;84(3):308–14. DOI: 10.1177/000348947508400304.
11. Alessi D.M., Zimmerman M.C. Granular cell tumors of the head and neck. *Laryngoscope* 1988;98(8):810–4. DOI: 10.1288/00005537-198808000-00003.

Вклад авторов

З.А.-Г. Раджабова, М.А. Котов: обзор публикаций по теме статьи, анализ данных, написание текста статьи;

М.А. Раджабова: обзор публикаций по теме статьи;

О.И. Пономарева: выполнение магнитно-резонансной томографии;

А.С. Артемьева, В.А. Кушнарев: выполнение патоморфологического исследования.

Authors' contribution

Z.A.-G. Radzhabova, M.A. Kotov: reviewed relevant publications, analysis of the obtained data, article writing;

M.A. Radzhabova: reviewed relevant publications;

O.I. Ponomareva: performing magnetic resonance imaging;

A.S. Artemieva, V.A. Kushnarev: performing a pathomorphological study.

ORCID авторов / ORCID of authors

З.А.-Г. Раджабова / Z.A.-G. Radzhabova: <https://orcid.org/0000-0002-6895-0497>

М.А. Котов / M.A. Kotov: <https://orcid.org/0000-0002-2586-1240>

М.А. Раджабова / M.A. Radzhabova: <https://orcid.org/0000-0001-7679-129X>

О.И. Пономарева / O.I. Ponomareva: <https://orcid.org/0000-0002-7004-9630>

А.С. Артемьева / A.S. Artemieva: <https://orcid.org/0000-0002-2948-397X>

В.А. Кушнарев / V.A. Kushnarev: <https://orcid.org/0000-0003-4608-934>

Соблюдение прав пациентов. Пациент подписал информированное согласие на публикацию своих данных.

Compliance with patient rights. The patient gave written informed consent to the publication of his data.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Финансирование. Работа выполнена без спонсорской поддержки.

Financing. The work was performed without external funding.

Статья поступила: 25.02.21. **Принята к публикации:** 29.04.2021.

Article submitted: 25.02.21. **Accepted for publication:** 29.04.2021.