

Zánětlivý pseudotumor plicí simulující malignitu při hybridním ^{18}F -FDG PET/CT zobrazení

Lung inflammatory pseudotumor mimicking malignancy on hybrid FDG PET/CT imaging – a case report

Jiří Doležal¹, Jiří Vaňásek², Martina Beránková¹, Leona Studničková¹, Lucie Turková², Michal Hrnčiarik³, Helena Hornychová⁴, Ivo Hanke⁵

¹Oddělení nukleární medicíny LF UK a FN, Hradec Králové

²Radiologická klinika LF UK a FN, Hradec Králové

³Plicní klinika LF UK a FN, Hradec Králové

⁴Fingerlandův ústav patologie LF UK a FN, Hradec Králové

⁵Kardiochirurgická klinika LF UK a FN, Hradec Králové

Hlavní stanovisko práce

Prezentujeme zajímavý případ zánětlivého pseudotumoru v pravé plicí simulující maligní epiteliální tumor s diseminací do mediastinálních lymfatických uzlin při hybridním ^{18}F -FDG PET/CT vyšetření u 63leté ženy dlouhodobě sledované pro asthma bronchiale.

SOUHRN

Doležal J, Vaňásek J, Beránková M, Studničková L, Turková L, Hrnčiarik M, Hornychová H, Hanke I. Zánětlivý pseudotumor plicí simulující malignitu při hybridním ^{18}F -FDG PET/CT zobrazení

Cíl: Prezentovat zajímavý případ zánětlivého pseudotumoru v pravé plicí simulující maligní tumor s lokoregionální diseminací při ^{18}F -FDG PET/CT vyšetření u 63leté ženy.

Metodika: Pacientka byla dlouhodobě léčena pro asthma bronchiale. Na RTG snímku a CT hrudníku a se nově zobrazila měkkotkáňová expanze v oblasti pravého plicního hilu, jež svědčila pro nádor. Před zvažováním chirurgickým výkonem bylo ještě provedeno ^{18}F -FDG PET/CT vyšetření s cílem dokončit staging. Celotělové PET/CT vyšetření proběhlo v rozsahu od báze lebni do poloviny stehen, a to za 60 minut po intravenózní aplikaci ^{18}F -FDG o aktivitě 416 MBq (tj. 5,1 MBq/kg). Akviziční čas PET zobrazení činil 2,5 minuty na projekci, celkem bylo provedeno sedm projekcí. V identickém rozsahu bylo provedeno nativní CT zobrazení.

Výsledky: PET/CT zobrazilo tumorózní expanzi s intenzivní akumulací ^{18}F -FDG v pravém plicním hilu a několik lymfatických uzlin

Major statement

Herein we present an interesting case of an inflammatory pseudotumor in the right lung mimicking a malignant epithelial tumour with dissemination to the mediastinal lymph nodes on ^{18}F -FDG PET/CT scan in a 63-year-old woman under long-term follow-up for asthma bronchiale.

SUMMARY

Doležal J, Vaňásek J, Beránková M, Studničková L, Turková L, Hrnčiarik M, Hornychová H, Hanke I. Lung inflammatory pseudotumor mimicking malignancy on hybrid FDG PET/CT imaging – a case report

Aim: To present an interesting case of inflammatory pseudotumour in the right lung simulating a malignant epithelial tumour with locoregional dissemination on ^{18}F -FDG PET/CT in a 63-year-old woman.

Method: The patient was treated for asthma bronchiale for a long time. The chest X-ray and CT scan showed a new soft tissue expansion in the right lung hilum, which was highly suspicious for a tumour. An ^{18}F -FDG PET/CT imaging was performed to complete staging before surgical intervention. A whole-body PET/CT scan was performed from the base of the skull to the mid-thighs 60 minutes after intravenous administration of ^{18}F -FDG with an activity of 416 MBq (5.1 MBq/kg). The acquisition time of PET imaging was 2.5 minutes per bed projection and a total of 7 bed projections were performed. Native CT imaging was performed in an identical range.

Results: PET/CT showed intense ^{18}F -FDG uptake in tumorous expansion in the right

Přijato: 1. 8. 2023

Korespondenční adresa:

doc. MUDr. Jiří Doležal, Ph.D.
Oddělení nukleární medicíny FN
Sokolská 581, 500 05 Hradec Králové
e-mail: jiri.dolezal@fnhk.cz

Konflikt zájmů: žádný.

Výstup vznikl v rámci programu Cooperatio, vědní oblasti Medical Diagnostics and Basic Medical Sciences.

Podpořeno MZ ČR – RVO (FNHK, 00179906).

s intenzivní akumulací ^{18}F -FDG v mediastinu. Nález byl hodnocen jako viabilní nádorová expanze v pravém plicním hilu s viabilní nádorovou lymfadenopatií v mediastinu. Následovala pravostranná střední plicní lobektomie a mediastinální lymfadenektomie. Histologické vyšetření nicméně vyloučilo maligní epiteliální nádorové struktury v resekovaném plicním laloku a v lymfatických uzlinách, nález byl hodnocen jako mezenchymální afekce, na prvním místě byl zvažován zánětlivý pseudotumor.

Závěr: ^{18}F -FDG PET/CT vyšetření zobrazilo zánětlivý pseudotumor v pravé plicí simulující maligní tumor s diseminací do mediastinálních lymfatických uzlin.

Klíčová slova: zánětlivý pseudotumor, plíce, ^{18}F -FDG, PET/CT.

lung hilum and in mediastinal lymph nodes. The finding was evaluated as a viable tumour expansion in the right lung hilum with viable tumour lymphadenopathy in the mediastinum. This was followed by a right-sided mid-lung lobectomy and mediastinal lymphadenectomy. However, histological examination excluded malignant epithelial tumor structures in the resected lung lobe and lymph nodes; an inflammatory pseudotumour was proven.

Conclusion: ^{18}F -FDG PET/CT imaging showed an inflammatory pseudotumour in the right lung simulating a malignant epithelial tumour with dissemination to the mediastinal lymph nodes.

Key words: inflammatory pseudotumor, lung, ^{18}F -FDG, PET/CT.

ÚVOD

Cílem tohoto sdělení je prezentovat velmi zajímavý případ zánětlivého pseudotumoru v pravé plicí simulující maligní epiteliální tumor s lokoregionální diseminací při ^{18}F -FDG PET/CT vyšetření u 63leté ženy.

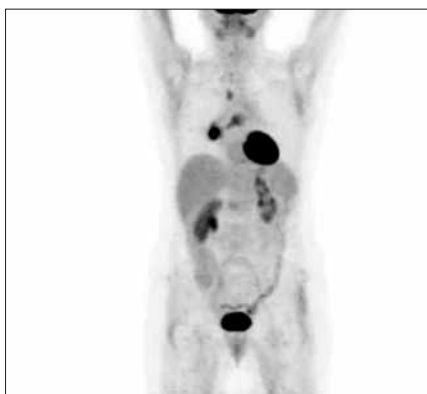
Pozitronová emisní tomografie (PET) s ^{18}F -FDG (fluorodeoxyglukóza) je neinvazivní metoda pro molekulární zobrazení metabolismu glukózy u zánětů a řady maligních tumorů, včetně karcinomu plic, kde umožňuje provést staging a kontrolu efektu léčby, a to s vysokou senzitivitou. Maligní nádorové buňky, ale i aktivované leukocyty v místě zánětu, vykazují zvýšenou konzumci a metabolismus glukózy. Stejně jako glukóza je i ^{18}F -FDG zvýšeně vychytávána v aktivovaných leukocytech v místě zánětu a v maligních nádorových buňkách, poté je fosforylována pomocí hexokinázy na deoxyglukózo-6-fosfát. Ten již (na rozdíl od glukózo-6-fosfátu) není dále metabolizován, a tudíž se hromadí v aktivovaných leukocytech a maligních nádorových buňkách. Radionuklid ^{18}F při svém rozpadu emituje z jádra pozitrony (fyzikální poločas rozpadu 109 minut), které interagují s elektrony v tkáni za vzniku dvou kvant anihilačního záření o energii 511 keV. Optimální doba pro zobrazení je 40–60 minut po intravenózní injekci ^{18}F -FDG (1, 2). Kombinace PET a CT (výpočetní tomografie) umožňuje fúzi funkčních a anatomických (morfologických) obrazů. Hybridní celotělový PET/CT zlepšuje diagnostický potenciál vyšetření a vykazuje synergický efekt z obou metod, tj., hybridní systém má

vyšší kvalitu vzájemné registrace dat obou vyšetření než prostá fúze obrazů ze samostatných přístrojů PET a CT.

Zánětlivý pseudotumor je heterogenní skupina převážně benigních lézí tvořených směsí zánětlivých elementů a fibroblastů/myofibroblastů. Do této skupiny lézí je řazen také inflamatorní myofibroblastický tumor – léze s hraničně maligním potenciálem, která má asi v polovině případů typickou genetickou aberaci (přestavby genů ALK nebo ROS1). I tato hraničně maligní léze je prognosticky zcela odlišná od většiny běžných epiteliálních malignit (riziko rekurence je kolem 20%, metastazování vzácné) (10, 11). Zánětlivý pseudotumor se vyskytuje poměrně vzácně, může postihovat jakýkoliv orgánový systém, ale nejčastěji to jsou plíce, očníce, CNS, nadledviny, srdce a trávicí trakt. V literatuře se zánětlivý pseudotumor také označuje jako „the great mimicker“ (2–5). Jelikož prakticky nikdy dopředu není známo, že se jedná o zánětlivý pseudotumor, a podle zobrazovacích metod je téměř vždy podezření, že se jedná o maligní tumor, je nejlepší léčba zánětlivého pseudotumoru včasná a kompletní chirurgická resekce (7).

KLINICKÁ DATA

Pacientka byla dlouhodobě léčena pro alergické eozinofilní asthma bronchiale. Na RTG snímku plic a se nově zobrazila měkkotkáňová expanze v oblasti dolního pólu pravého plicního hilu o průměru 3 cm s nasedajícím infiltrátem ve středním a dolním plicním poli. Následovalo provedení CT hrudníku, kde

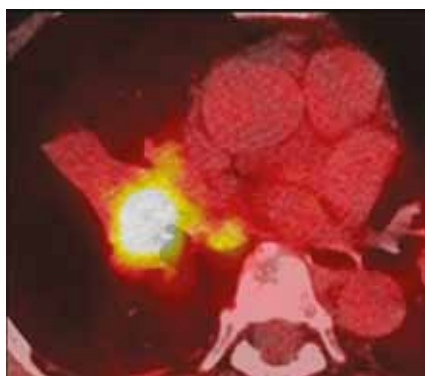


1 ¹⁸F-FDG PET, 3D rekonstrukce: intenzivní akumulace ¹⁸F-FDG v zánětlivém pseudotumoru v pravém plicním hilu a v mediastinálních lymfatických uzlinách simulující malignitu u 63leté ženy dlouhodobě sledované pro asthma bronchiale
¹⁸F-FDG PET, 3D reconstruction: intense ¹⁸F-FDG uptake in an inflammatory pseudotumour in the right lung hilum and mediastinal lymph nodes simulating malignancy in a 63-year-old woman followed for a long time for asthma bronchiale

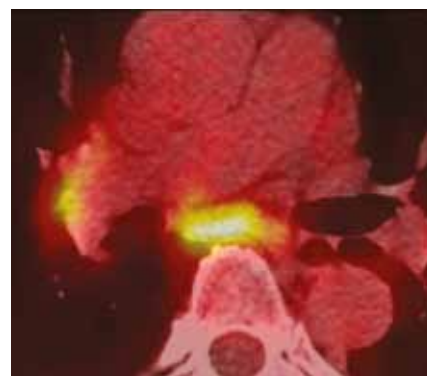
byla popsána měkkotkáňová expanze v pravém plicním hilu (40 × 30 × 36 mm) s útlakem bronchu pro pravý střední plicní lalok s postobstrukční atelektázou. Dle CT vyšetření se jednalo obraz tumorózní expanze v pravém plicním hilu. Stav pacientky byl zhodnocen na plicním indikačním semináři a před zvažovaným chirurgickým výkonem bylo ještě indikováno provedení ¹⁸F-FDG PET/CT vyšetření s cílem dokončit staging a vyloučit, či potvrdit regionální i distanční metastázy. Pacientka absolvovala celotělové PET/CT vyšetření v rozsahu od báze lební do poloviny stehen, a to za 60 minut po intravenózní aplikaci ¹⁸F-FDG (fludeoxyglukosa, ÚJV Řež, Řež, ČR) o aktivitě 416 MBq (tj. 5,1 MBq/kg). Před aplikací radiofarmaka pacientka lačněla 12 hodin a hladina glykemie před vyšetřením byla normální. Akviziční čas PET zobrazení činil 2,5 minuty na projekci, celkem bylo provedeno sedm projekcí. V identickém rozsahu bylo provedeno nativní CT zobrazení s předcházejícím *per os* podáním 1000 ml 2% Manitolu. Vyšetření se uskutečnilo na hybridním PET/CT skeneru Discovery VCT 64 (General Electric Healthcare, Milwaukee, USA) a vyhodnocení pomocí systému Advantage Workstation 4.7. Veškerá obrazová data byla zálohována do systému PACS. Hybridní PET/CT zobrazilo měkkotkáňovou tumorózní

expanzi s intenzivní akumulací ¹⁸F-FDG o rozměru 40 × 30 × 36 mm v pravém plicním hilu s útlakem bronchu pro pravý střední plicní lalok s postobstrukční atelektázou. Dále se zobrazilo několik lymfatických uzlin s intenzivní akumulací ¹⁸F-FDG v mediastinu paratracheálně vpravo (16 × 12 mm), subkarinálně (26 × 13 mm), dorzálně od pravého hlavního bronchu (13 × 8 mm) a v horním mediastinu (9 × 6 mm). Nález byl hodnocen jako viabilní nádorová expanze v pravém plicním hilu s viabilní nádorovou lymfadenopatií v mediastinu. Distanční metastázy byly vyloučeny. Následně pacientka podstoupila pravostrannou střední plicní lobektomii a mediastinální lymfadenektomii.

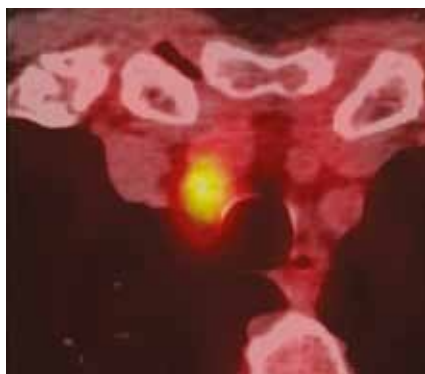
Plicní lalok a lymfatické uzliny byly odeslány k histologickému vyšetření. K našemu velkému překvapení maligní epitelální nádorové struktury nebyly zastíženy ani v resekovaném plicním laloku ani v lymfatických uzlinách, dále nebylo zachyceno ani žádné mikrobiální agens. Histologický nález byl hodnocen jako mezenchymální afekce, na prvním místě byl zvažován zánětlivý pseudotumor, byla negativní speciální barvení na běžná infekční agens a imunohistochemicky nebyla zachycena exprese markerů ALK a ROS1 vyskytujících se u genetických změn pro inflamatorní myofibroblastický tumor. Bylo doporučeno dlouhodobé sledování pacientky (obr. 1, 2, 3 a 4).



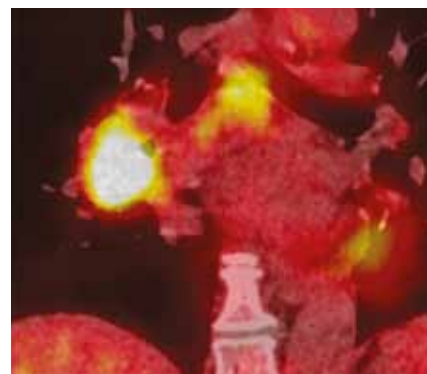
2 ¹⁸F-FDG PET/CT fúze, axiální řez: intenzivní akumulace ¹⁸F-FDG v zánětlivém pseudotumoru v pravém plicním hilu
¹⁸F-FDG PET/CT fusion, axial section: intense ¹⁸F-FDG uptake in an inflammatory pseudotumor in the right lung hilum



3 ¹⁸F-FDG PET/CT fúze, axiální řez: intenzivní akumulace ¹⁸F-FDG v lymfatické uzlině subkarinálně
¹⁸F-FDG PET/CT fusion, axial section: intense accumulation of ¹⁸F-FDG in the subcarinal lymph node



4 ¹⁸F-FDG PET/CT fúze, axiální řez: intenzivní akumulace ¹⁸F-FDG v lymfatické uzlině v horním mediastinu paratracheálně
¹⁸F-FDG PET/CT fusion, axial section: intense accumulation of ¹⁸F-FDG in the paratracheal lymph node in the upper mediastinum



5 ¹⁸F-FDG PET/CT fúze, koronální řez: intenzivní akumulace ¹⁸F-FDG v zánětlivém pseudotumoru v pravém plicním hilu a subkarinální lymfatické uzlině v mediastinu
¹⁸F-FDG PET/CT fusion, coronal section: intense ¹⁸F-FDG uptake in an inflammatory pseudotumor in the right lung hilum and subcarinal lymph node in the mediastinum

DISKUSE

Podobných případů, kdy zánětlivý idiopatický pseudotumor simuluje maligní epiteliální tumor při ^{18}F -FDG PET/CT vyšetření, není ve světovém písemnictví právě mnoho. Kaplan et al. (6) popsali podobný případ 65leté ženy, která byla vyšetřována pro teploty, bolesti břicha a anemii. Zobrazovací metody zjistily měkkotkáňovou masu mezi levou nadledvinou a kaudou pankreatu, jež byla vysoce suspektní pro malignitu. Masa byla následně odstraněna a jednalo se zánětlivý pseudotumor pankreatu. Velmi zajímavou práci uveřejnili Hirai et al. (7). Jednalo se o dva pacienty, a to o 52letého muže s bolestmi na hrudi vlevo a nodularitou v horním plicním poli o průměru 15 mm. Druhou pacientkou byla 64letá žena s anamnézou chronického kašle a hemoptýzou a s nodularitou o průměru 8 mm v levém dolním plicním poli. V obou případech bylo podezření na malignitu. Oba pacienti podstoupili torakoskopickou resekci a histologické vyšetření prokázalo

k velkému překvapení zánětlivý pseudotumor u obou pacientů. Zajímavý případ publikovali také Sulu et al. (8). Jednalo se o 50letého muže, který byl vyšetřován pro 3 měsíce trvající kašel a hemoptýzu. Na CT se zobrazila měkkotkáňová masa v pravém horním plicním laloku s invazí do mediastina. Bronchoskopie odhalila úplný uzávěr bronchu pro pravý horní plicní lalok a infiltraci bronchu pro pravý střední plicní lalok, nicméně biopsie nebyla průkazná. Poté pacient absolvoval ^{18}F -FDG PET/CT vyšetření, kde tato masa intenzivně akumulovala radiofarmakum. Nález byl vysoce suspektní pro malignitu. Následovala torakotomie s odběrem vzorku. Histologické vyšetření prokázalo zánětlivý pseudotumor. Jelikož byla patrná invaze masy do pravé pulmonální arterie a do v. cava superior, nález nebyl operabilní. Kortikoterapie byla bez efektu. Dále byla zvažována zevní radioterapie, nicméně pacient náhle zemřel. Velmi poučnou práci uveřejnili Yano et al. (9). Jednalo se o 58letého muže, jemuž v rámci preventivní prohlídky bylo provedeno

CT hrudníku. Ve středním plicním laloku se zobrazila malá oblast s denzitou mléčného skla. O měsíc později bylo provedeno další CT hrudníku a léze se transformovala v nodularitu o průměru 15 mm. Následovalo ^{18}F -FDG PET/CT vyšetření, kde tato léze akumulovala radiofarmakum, a bylo vysloveno podezření na malignitu. Nicméně případné regionální či distanční metastázy byly vyloučeny. Byla provedena transbronchiální biopsie, a to dokonce dvakrát, nicméně v obou případech byla nepřínosná. Vzhledem k podezření na malignitu pacient podstoupil pravostrannou střední plicní lobektomii. Histologické vyšetření vyloučilo epiteliální malignitu a prokázalo přítomnost zánětlivého pseudotumoru.

ZÁVĚR

^{18}F -FDG PET/CT vyšetření zobrazilo zánětlivý pseudotumor v pravé plicí simulující maligní tumor s diseminací do mediastinálních lymfatických uzlin. ●

LITERATURA

1. Ziessman HA, O'Malley J, Thrall JH. Nuclear Medicine – The Requisites in Radiology, Third Edition. Philadelphia, USA: Elsevier Mosby 2006; 302–305.
2. Liu Ch, Ma Ch, Duan J, Qiu Q, Guo Y, Zhang Z, Yin Y. Using CT texture analysis to differentiate between peripheral lung cancer and pulmonary inflammatory pseudotumor. BMC Medical Imaging 2020; 20(1): 75–85.
3. Patnana M, Sevrakov BA, Elsayes KM, Viswanathan Ch, Lubner M. Inflammatory pseudotumor: The great mimicker. AJR Am J Roentgenol 2012; 198(3): 17–27.
4. Klímová A, Diblík P, Kuthan P, Sklenka P. Zánětlivý pseudotumor očníce. Neurologie pro Praxi 2011; 12(3): 164–166.
5. Narla DL, Newman B, Spottswood SS, Marla S, Kollu R. Inflammatory pseudotumor. Radiographics 2003; 23(3): 719–729.
6. Kaplan J, Mangum C, Shoukry M, Gabriel E. Inflammatory pseudotumor resembling a malignant pancreatic disease process. Anticancer Res 2021; 41(4): 2079–2082.
7. Hirai S, Katayama T, Chatani N, Satoh K, Mitsui N. Inflammatory Pseudotumor Suspected of Lung Cancer Treated by Thoracoscopic Resection. Ann Thorac Cardiovasc Surg 2011; 17(1): 48–52.
8. Sulu E, Damadoglu E, Takir HB, Okur HK, Köroglu E, Yilmaz A. A case of endobronchial inflammatory pseudotumor invading the mediastinum. Tuberk Toraks 2011; 59(1): 77–80.
9. Yano Y, Mori M, Kagami S, Fushitani K., Sugano T, Namba Y, Yoneda T, Yokota S, Maeda H, Ueda K. Inflammatory pseudotumor of the lung with rapid growth. Intern Med 2009; 48(15): 1279–1282.
10. Dacic S, Lazar AJ, Noguchi M, Maleszewski JJ. (eds.); Tavora F, Hornick JL, Jain D, et al. (authors) Inflammatory myofibroblastic tumour of the thorax. In: WHO Classification of Tumours Editorial Board. Thoracic tumours. Lyon (France): International Agency for Research on Cancer; 2021 (WHO classification of tumours series, 5th ed.; vol. 5). <https://publications.iarc.fr/595>
11. Yi E, Aubry MCh. Pulmonary pseudoneoplasms. Arch Pathol Lab Med 2010; 134(3): 417–426.