

PERIAORTÁLNÍ LYMFOM IMITUJÍCÍ INFEKČNÍ KOMPLIKACI PO EVAR

PERIAORTIC LYMPHOMA MIMICKING INFECTIOUS COMPLICATION AFTER EVAR

kazuistika

Milan Vajda¹
Jan Raupach¹
Antonín Krajina¹
Miroslav Lojík¹
Petr Hoffmann¹
Michal Hůlek¹
Ondřej Živný¹
Radovan Malý²
Veronika Vršanská²
David Belada³

¹Radiologická klinika LF UK a FN, Hradec Králové

²I. interní kardiologická klinika LF UK a FN, Hradec Králové

³IV. interní hematologická klinika LF UK a FN, Hradec Králové

Přijato: 4. 4. 2018.

Korespondenční adresa:

MUDr. Milan Vajda
Fakultní nemocnice Hradec Králové
Sokolská 581
500 05 Hradec Králové
e-mail: milan.vajda@fnhk.cz

Hlavní stanovisko práce

Prezentujeme případ pacienta s periaortálním lymfomem imitujícím infekční zánětlivou infiltraci v okolí aorty se zavedeným stentgraftem.

SOUHRN

Vajda M, Raupach J, Krajina A, Lojík M, Hoffmann P, Hůlek M, Živný O, Malý R, Vršanská V, Belada D. Periaortální lymfom imitující infekční komplikaci po EVAR

Kazuistika pojednává o 85letém pacientovi s aneurysmatem subrenální aorty (AAA), který v roce 2012 podstoupil jeho endovaskulární léčbu (EVAR) zavedením bifurkačního stentgraftu a po 5 letech stability došlo náhle k rozšíření vaku výdutě. Za příčinu se považoval suspektní distální endoleak typu Ib, proto byla provedena extenze původního stentgraftu. Následující kontrola po výkonu pomocí CT angiografie pak odhalila rozsáhlý periaortální infiltrát, který se považoval za infekční komplikaci předchozí léčby. K dovyšetření původu retroperitoneálního infiltrátu jsme provedli perkutánní biopsii transkaválním přístupem. Výsledkem byl agresivní high-grade difuzní velkobuněčný B lymfom, který pravděpodobně invadoval stěnu aorty a podmínil tak rozšíření původně stabilního vaku AAA. Jeho časná diagnostika umožnila promptní zahájení onkologické léčby. Diferenciální diagnostika retroperitoneálního infiltrátu zahrnuje především bakteriální infekci, pak idiopatickou retroperitoneální fibrózu a ve vzácných případech, jak prezentujeme zde, lymfom.

Klíčová slova: aneurysma břišní aorty, EVAR, lymfom.

Major statement

We present a case of a patient with periaortic lymphoma, that imitated infectious infiltration around aortic aneurysm with stent graft.

SUMMARY

Vajda M, Raupach J, Krajina A, Lojík M, Hoffmann P, Hůlek M, Živný O, Malý R, Vršanská V, Belada D. Periaortic lymphoma mimicking infectious complication after EVAR

Our case report presents an 85-year-old patient with an abdominal aortic aneurysm (AAA) who underwent endovascular treatment in 2012 by implanting bifurcated stent graft, and after 5 years of its stability, the aneurysm sac suddenly dilated. The suspected distal endoleak (type Ib) was considered to be the cause, so we decided to extend the original stent graft. The following posttreatment CT scan revealed a large periaortic infiltration, that was considered as infectious complication of the stent graft implantation. To investigate the origin of the retroperitoneal infiltration, we performed percutaneous biopsy through transcaval approach. The final diagnose was an aggressive high-grade diffuse large-cell B-cell lymphoma, that probably invaded the aorta wall and cause expansion of the originally stable AAA with stent graft. Its early diagnosis allowed prompt oncology treatment. Differential diagnosis of retroperitoneal infiltration includes bacterial infection, idiopathic retroperitoneal fibrosis and, in rare cases as presented here, lymphoma.

Key words: abdominal aortic aneurysm, EVAR, lymphoma.

Konflikt zájmů: žádný.



▲ Obr. 1



▲ Obr. 2

Obr. 1. Nativní CT z července 2016 prokazuje stabilní šíři vaku AAA o průměru 55 mm, stav po EVAR před 5 lety

Fig. 1. Native CT from July 2016 shows stable AAA with 55 mm in diameter, condition after EVAR from 5 years ago

Obr. 2. CT angiografie ve venózní fázi v červenci 2017 nově prokazuje rozšíření vaku AAA na 63 mm bez známek endoleaku

Fig. 2. CT angiography in venous phase from July 2017 proves dilatation of AAA to 63 mm without signs of endoleak

ÚVOD

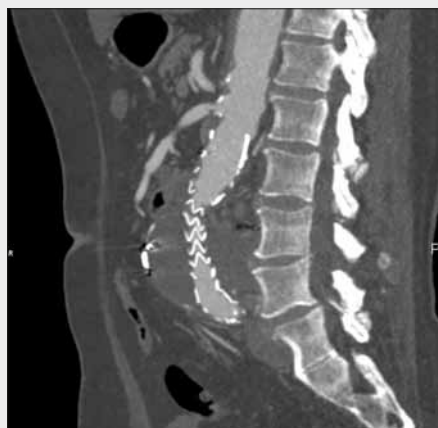
Incidence maligních lymfomů v posledních desetiletích stoupá. V České republice se zvýšil výskyt mezi lety 2000 a 2011 o více než 30 %. Příčina není zcela jasná, uvažuje se o vlivu prodlužujícího se věku a vzrůstající imunokompromitace populace, ale jednoznačné vysvětlení není známo (1). V roce 2014 bylo v České republice hlášeno 2,7 hodgkinských a 14,5 non-hodgkinských lymfomů (NHL) na 100 000 obyvatel, celkově 2 % všech novotvarů (2). Difuzní velkobuněčný B lymfom (DLBCL) patří v České republice k nejčastějšímu podtypu (25–40 % všech NHL), je typický ve vyšším věku, medián jeho výskytu se uvádí kolem 70. roku života (2). Postižené mohou být kromě lymfatických uzlin i extranodální lokality, a to nejčastěji mediastinum, centrální nervový systém, žaludek, prs, varle, tlusté střevo a ileocekální oblast (3).

Primární retroperitoneální lokalizace je vzácná, popsaných bylo pouze několik případů (4, 10, 11). Agresivní forma DLBCL může invadovat aortální stěnu a potencovat tak dilataci a vývoj aneurysmatu či jeho komplikace. Periaortální lokalizace lymfomu pak připomíná zánětlivý infiltrát či dokonce intramurální hematoma. Naše kazuistika pojednává o pacientovi s aneurysmatem subrenální aorty (AAA) po úspěšném EVAR, u kterého klinický nálezy i nálezy zobrazovacích metod připomínaly infekci či inflamatorní afekci a až biopsie ozřejmila typ postižení.

KAZUISTIKA

Pacient, 85 let, s negativní onkologickou anamnézou byl v roce 2012 endovaskulárně léčen pro asymptomatické AAA o průměru 55 mm zavedením bifurkačního stentgraftu (Endurant 25/16 × 145 mm, Medtronic, Santa Rosa, CA) (obr. 1). V následném pětiletém období byl pravidelně kontrolován pomocí CT s nálezem stabilní AAA bez endoleaku. Z jeho dalších komorbidit lze zmínit anemii, arteriální hypertenzi, chronickou žilní insuficienci a ischemickou chorobu dolních končetin.

Pacient přichází v červenci 2017 na pravidelnou kontrolu do angiologické poradny Fakultní nemocnice Hradec Králové (FN HK), kde udává asi půl roku trvající, postupně se zhoršující křečovitě postprandiální bolesti břicha, které jsou bez odezvy na běžně dostupná analgetika, došlo také k náhlé ztrátě hmotnosti (20 kg za 6 měsíců). Kontrolní ultrazvukové vyšetření (UZ) AAA vyslovilo podezření na endoleak a prokázalo náhlou progresi velikosti vaku AAA o 8 mm. Kontrolní CT vyšetření potvrdilo rozšíření vaku výdutě AAA na 63 mm (obr. 2) bez jeho typického promývání charakteru endoleaku. Vzhledem k dilataci společných iliackých tepen jsme se domnívali, že se jedná o distální endoleak Ib. Nově byla na CT prokázána významná 80% odstupová stenóza arteria mesenterica superior (SMA) (obr. 3 A), která by vysvětlovala abdominální anginu a pacientovo náhlé hubnutí. Retrospektivní kontrolou byl již v tomto čase v blízkosti AAA



▲ Obr. 3A



▲ Obr. 3B

Obr. 3 A. CT angiografie na multiplanární rekonstrukci (MPR) v sagitální rovině zachycuje odstupovou stenózu arteria mesenterica superior (červenec 2017)

Fig. 3 A. CT angiography on multiplanar reconstruction (MPR) in sagittal plane proves stenosis of superior mesenteric artery (July 2017)

Obr. 3 B. Kontrolní CT angiografie na MPR v sagitální rovině z prosince 2017 prokázala volně průchodný stent v arteria mesenterica superior

Fig. 3 B. Follow-up CT angiography on MPR in sagittal plane from December 2017 proves fully patent stent in superior mesenteric artery



▲ Obr. 4

Obr. 4. Pánevní angiografie při endovaskulárním výkonu ze srpna 2017 zachycuje extenzi původního stentgraftu, vpravo do arteria iliaca externa, vlevo do distální arteria iliaca communis

Fig. 4. Pelvic angiography during endovascular treatment from August 2017 shows the extension of original stent graft, right side to external iliac artery, left side to distal common iliac artery

zřetelný malý infiltrát, který ale nebyl popsán. Na multioborovém semináři (intervenční radiolog, angiolog, cévní chirurg) bylo rozhodnuto o endovaskulárním řešení nálezu. V srpnu 2017 byl původní stentgraft extendován vpravo do arteria iliaca externa a vlevo do distální arteria iliaca communis (obr. 4) a provedena perkutánní transluminální angioplastika (PTA) se zavedením balon-expandibilního stentu (7 × 14 mm, ParaMount Mini, ev3, Plymouth, MN) do SMA.

Po krátkém přechodném zlepšení klinického stavu se však obtíže objevily znovu, nově pacient udával noční třesavky. Pacient byl hospitalizován koncem listopadu 2017 s podezřením na restenózu stentu v SMA, která však při kontrolní angiografii nebyla potvrzena (obr. 3 B). Doplněná CT angiografie břišní aorty a pánevních tepen nachází progresi retroperitoneálního infiltrátu v okolí AAA s kompresí dolní duté

žíly a suspekci na aortoduodenální píštěl. Periaortální infiltrát se po podání kontrastní látky ve venózní fázi neopacifikoval a zůstával izodenzní s okolními svaly (obr. 5). Prvotně se pomyslelo na infekční komplikaci endovaskulárního výkonu, proto byla empiricky zahájena terapie širokospektrými ATB (meropenem a vankomycin). Hemokultury před zahájením ATB terapie byly negativní. Ke stanovení definitivní diagnózy pacient podstoupil perkutánní biopsii infiltrátu, která byla provedena transkaválně z dorzálního přístupu (obr. 6) a prokázala DLBCL. Následně byla zahájena antilymfomová léčba pomocí mini R-CHOP (rituximab, cyklofosfamid, doxorubicin, vincristin, prednisolon), k únoru 2018 byl pacient po třech cyklech chemoterapie.

DISKUSE

Diferenciální diagnostika retroperitoneálního infiltrátu v naší kazuistice zahrnovala infekci stentgraftu, retroperitoneální fibrózu, hematom a velmi raritně i primární periaortální lymfom.

Na prvním místě se uvažovalo o infekční komplikaci po EVAR, i když CT nález nebyl typický. Nejčastěji při infekci nalézáme v okolí aorty infiltrát s kolekcí plynu nebo bubliny plynu i v samotném vaku výdutě v okolí stentgraftu. Dalším typickým nálezem jsou pak tekutinové kolečky ohraničené opacifikující se membránou, tedy abscesy. Byla také vyslovena suspekce na aortoduodenální píštěl, která se může v případě infekce v této lokalitě vyskytnout (5). Ta se však projevuje klinicky krvácením do trávicího traktu, které nebylo v našem případě přítomné. Další možná vyšetřovací modalita u infekce je PET/CT vyšetření s využitím 2-fluoro-2-deoxy-D-glukózy (¹⁸F-FDG). Značená glukóza se však vychytává nejen v inflamatorních afekcích, ale také v některých maligních tkáních, a tím klesá její výtěžnost (6). Proto je ke stanovení definitivní diagnózy často nutné provedení cílené biopsie. Infekční komplikace po EVAR se sice vyskytuje s nízkou incidencí pod 1 % (5), mortalita je však vysoká, pohybuje se mezi 46–58 % (7). Proto jsme okamžitě zahájili kombinovanou ATB terapii, navzdory negativním hemokulturám a nejednoznačným zánětlivým parametřům. Po stanovení diagnózy byla ATB terapie ukončena.

Retroperitoneální fibróza jako další možná příčina infiltrátu je vzácné onemocnění nejasné etiologie s prevalencí 1/200 000 obyvatel, charakterizované *in situ* novotvorbou fibrotické tkáně. Tato nozologická jednotka se projevuje pe-



▲ Obr. 5



▲ Obr. 6

Obr. 5. CT angiografie, venózní fáze v prosinci 2017 nově zachytila rozsáhlý retroperitoneální podkovovitý infiltrát v okolí AAA se zavedeným stentgraftem

Fig. 5. CT angiography, venous phase from December 2017 shows large retroperitoneal „horseshoe-like” mass around AAA with stent graft

Obr. 6. Perkutánní biopsie retroperitoneálního infiltrátu transkaválním přístupem pod CT kontrolou

Fig. 6. Percutaneous transcaval biopsy of retroperitoneal mass under CT guidance

rianeurysmální retroperitoneální fibrózou, a klinické známky připomínají nádorové onemocnění (únava, váhový úbytek, bolesti v zádech) (8). CT vyšetření nachází infiltrát v retroperitoneu, nativně izodenzní s okolními svaly, který přechází kolem dilatované aorty a iliackých tepen a často komprimuje uretery se vznikem hydronefrózy. Při aktivní fibróze nebo v počátečních stádiích můžeme při použití kontrastní látky vidět ve venózní fázi opacifikaci o 20–60 Hounsfieldových jednotek podkovovitého periaortálního infiltrátu (9). Definitivní diagnóza se stanovuje biopsickým vyšetřením.

Retroperitoneum je jako lokalizace primárního lymfomu velmi vzácné a popisují se jen ojedinělé případy (4, 10). Angioinvasivní růst je málo typický pro B buněčné lymfomy, častěji se vyskytuje u T buněčných lymfomů nebo lymfomů pocházejících z NK (natural killers cell) buněk. Jejich agresivní růst může poškodit stěnu aorty a tak způsobit její disekci, aortální vřed nebo rupturu. Tyto komplikace je pak možné řešit endovaskulárně, jak bylo popsáno v literatuře zatím pouze ve třech případech. V roce 2002 Williamson et al. publikoval případ ruptury aneurysmatu aorty a iliackých tepen invazivním lymfomem, která byla řešena implantací bifurkačního stentgraftu (11). Další publikace pojednávají o endovaskulární léčbě pacientů s periaortálním lymfomem, který imitoval mykotické aneurysma abdominální, a ve druhém případě hrudní aorty

(12, 13). Naše kazuistika je jedinečná v tom, že popisuje případ, kdy došlo k dilataci aorty již primárně léčené stentgraftem, a příčinou dilatace může být právě nově vznikající angioinvasivní lymfom, který se jasně projevil na CT až v průběhu následujícího půl roku.

ZÁVĚR

Určení správné diagnózy retroperitoneálního, periaortálního infiltrátu pouze na základě zobrazovacích metod bývá někdy velmi obtížné. Velmi důležitá je podrobná znalost klinických a laboratorních nálezů a také předchozích léčebných zákroků a operací, které mají svoje specifické komplikace. V našem případě, kdy došlo k náhlé dilataci vaku aneurysmatu a k rozvoji periaortální infiltrace po předchozí úspěšné EVAR léčbě, určila překvapující diagnózu angioinvasivního lymfomu typu B až cílená biopsie infiltrátu. V diferenciální diagnóze jsme ale uvažovali na prvním místě o možné infekční komplikaci anebo o inflamatorní (neinfekční) afekci. Domníváme se tedy, že nestabilita stěny vaku aneurysmatu mohla být podmíněna právě rozvojem NHL. Včasná diagnostika a terapie zlepšuje prognózu a zvyšuje pětileté přežívání pacientů s NHL na 70 % (14).

LITERATURA

1. **Belada D, Trněný M, a kol.** Diagnostické a léčebné postupy u nemocných s maligními lymfomy – IX. vydání. Hradec Králové: HK CREDIT 2016; 9–11.
2. **Janíková A.** Ne-Hodgkinovy lymfomy v seniorském věku. *Onkologie* 2017; 11(3): 128–133.
3. **Ballová V.** Difúzní velkobunkový lymfóm B-pôvodu. *Via practica* 2008; 5(12): 510–513.
4. **Piled SA, Zinzani PL, Ascani S, et al.** Diffuse large B-cell lymphoma with primary retroperitoneal presentation: Clinico-pathologic study of nine cases. *AnnOncol* 2001; 12: 1445–1453.
5. **Setacci C, Chisci E, Setacci F, et al.** How to diagnose and manage infected endografts after endovascular aneurysm repair. *Aorta (Stamford)* 2014; 2(6): 255–264.
6. **Carter KR, Kotlyarov E.** Common causes of false positive ¹⁸F-FDG PET/CT scans in oncology. *Braz Arch Biol Technol* 2007; 50: 29–35.
7. **Argyriou C, Georgiadis GS, Lazarides MK, Georgakarakos E, Antoniou GA.** Endograft infection after endovascular abdominal aortic aneurysm repair: a systematic review and meta-analysis. *Endovasc Therapy* 2017; 24(5): 688–697.
8. **Zhang S, Chen M, Li C, et al.** Differentiation of lymphoma presenting as retroperitoneal mass and retroperitoneal fibrosis: Evaluation with multidetector – row computed tomography. *Chin Med J* 2017; 130(6): 691–697.
9. **Průcha M, Beňo P, Bartůňek M, a kol.** Idiopatická retroperitoneální fibróza – Ormondova choroba: kazuistika. *Vnitř. Lék.* 2008; 54(3): 282–286.
10. **Chen L, Kuriakose P, Hawley RC, Janakiraman N, Maeda K.** Hematologic malignancies with primary retroperitoneal presentation: clinicopathologic study of 32 cases. *Arch Pathol Lab Med* 2005; 129(5): 655–660.
11. **Williamson AE, Annunziata G, Cone LA, et al.** Endovascular repair of a ruptured abdominal aortic and iliac artery aneurysm with an acute ilioacaval fistula secondary to lymphoma. *Ann Vasc Surg* 2002; 16(2): 145–149.
12. **Yiu WK, Chan YC, Cheng SW.** Para-aortic lymphoma simulating mycotic abdominal aortic aneurysm. *Circulation* 2013; 128(6): 674–675.
13. **Raupach J, Vales J, Vojacek J, et al.** Endovascular treatment of symptomatic thoracic aneurysm due to periaortic lymphoma. *Vasc Endovasc Surg* 2018; Accepted to publication.
14. **Cancer Research UK,** <http://www.cancer-researchuk.org/health-professional/cancer-statistics/statistics-by-cancer-type/non-hodgkin-lymphoma/survival#heading-Three>, Reviewed May, 2013.