

Otrzymano:  
20.10.2018  
Zaakceptowano:  
16.02.2019  
Opublikowano:  
28.06.2019

## Guz typu angiomiofibroblastoma moszny w ultrasonografii

### Sonographic appearance of angiomiofibroblastoma-like tumor of the scrotum

Tamar Kass<sup>1,2</sup>, David Cohen<sup>2,3</sup>, Paul Gottlieb<sup>1,2</sup>, Simon Strauss<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup> Department of Diagnostic Imaging, Assaf Harofeh Medical Center, Zerifin, Izrael

<sup>2</sup> Sackler School of Medicine, Tel Aviv University, Tel Awiw, Izrael

<sup>3</sup> Department of Pathology, Herzliya Medical Center, Herzliya, Izrael

Adres do korespondencji: Tamar Kass, MD, Assaf Harofeh Medical Center, Zerifin, Israel; tel. 972-8-9648040, e-mail: tamarkass@gmail.com

DOI: 10.15557/JoU.2019.0023

#### Słowa kluczowe

angiomiofibroblastoma,  
ultrasonografia,  
jądra

#### Keywords

angiomiofibroblastoma,  
sonography,  
testes

#### Abstract

A variety of extratesticular tumors and tumor-like conditions can occur in the scrotum. Angiomiofibroblastoma is a rare, slow-growing, well-circumscribed mesenchymal tumor, found predominantly in women, and is even a more unusual occurrence in the male genital tract. We describe a case of a 64-year-old male presenting with a scrotal painless mass. On sonography, a well-circumscribed extratesticular mass was present. As no specific imaging findings were present, it was a surprise to learn that the subsequently excised mass proved to be an angiomiofibroblastoma-like tumor. To the best of our knowledge, the sonographic appearance of this tumor in the scrotum has been reported previously in only one case.

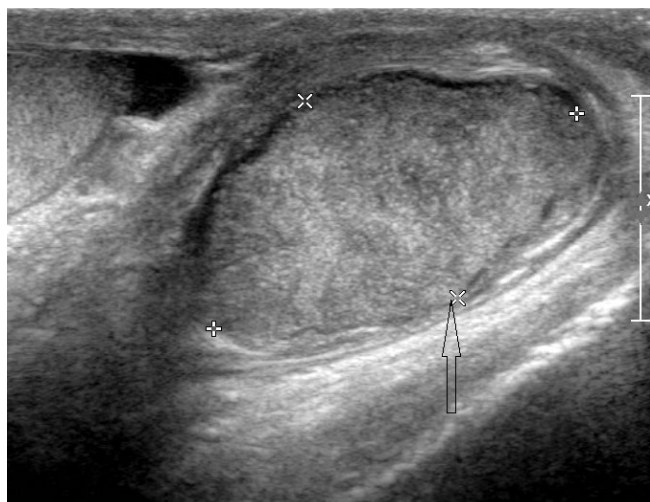
## Wstęp

Angiomiofibroblastoma (AMF) to wolno rosnący i bezobjawowy łagodny guz pochodzenia mezenchymalnego, występujący w obrębie układu rozrodczego, sromu, krocza i miednicy u kobiet, natomiast u mężczyzn guzy typu angiomiofibroblastoma spotyka się w okolicy pachwin, moszny i krocza<sup>(1)</sup>. Nowotwór zwykle rozwija się w 5.–6. dekadzie życia. Wywodzi się z okołonaczyniowych komórek macierzystych i ma zdolność do różnicowania w kierunku tłuszczaka lub miofibroblastomy. Opisy guza typu AMF w piśmiennictwie dotyczą niewielkich grup chorych lub pojedynczych pacjentów<sup>(2)</sup>, u których zmiana pojawiła się zazwyczaj w okolicy pachwinowej. Nowotworowi temu nie poświęcono dotychczas zbyt wiele uwagi w literaturze dotyczącej diagnostyki obrazowej.

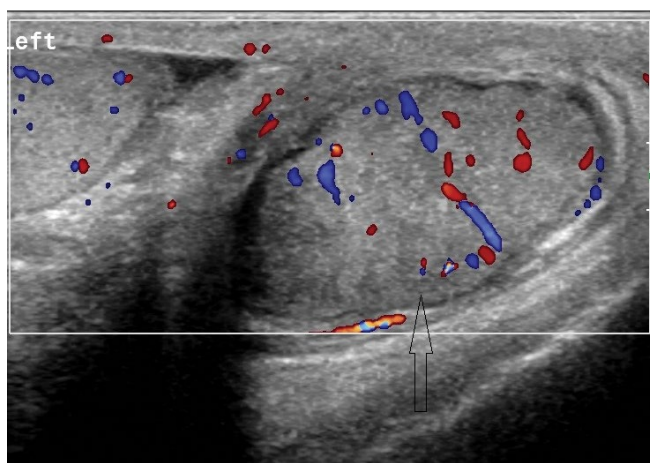
Przedstawiamy nietypowy przypadek guza typu AMF zlokalizowanego w mosznie. Według naszej wiedzy obraz ultrasonograficzny tego typu guza w obrębie moszny opisano dotąd tylko w jednym przypadku<sup>(1)</sup>.

## Opis przypadku

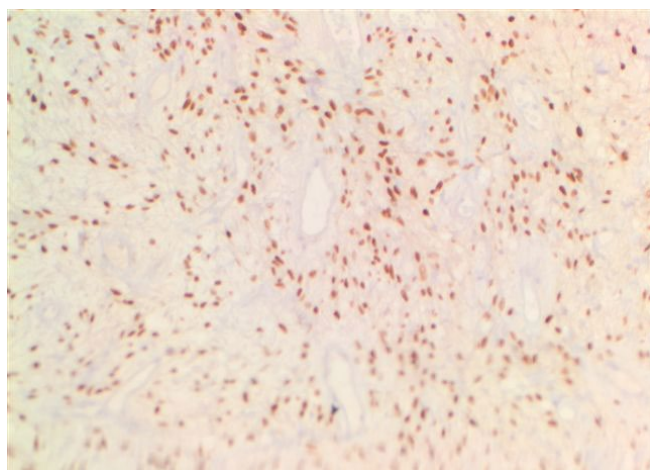
Mężczyzna, lat 64, zauważył niebolesną, wolno rosnącą zmianę w worku mosznym i został skierowany na badanie ultrasonograficzne w celu dalszej oceny. W badaniu podmiotowym bez obciążenia, chory nie zgłaszał gorączki ani urazu moszny. Badanie fizykalne ujawniło obecność niebolesnej, nieco ruchomej i dobrze odgraniczonej zmiany wielkości 3,0 cm o gumowatej konsystencji, umiejscowionej w sąsiedztwie lewego jądra, ale niezwiązanej z nim. Skóra ponad zmianą była niezmieniona. W badaniu ultrasonograficznym moszny jądra były niezmienione, a badanie dopplerowskie uwidocznilo prawidłowe przepływy. Stwierdzono dodatkowo obecność dobrze odgraniczonej, owalnej zmiany litej o wymiarach 3,0 × 2,0 cm, której echogeniczność i wzorzec przepływu były zbliżone do tych w obrębie sąsiadującego z guzem jądra (Ryc. 1, 2). Obraz ultrasonograficzny skłaniał do diagnostyki różnicowej z uwzględnieniem jądra nadliczbowego lub guza mezenchymalnego.



Ryc. 1. Obraz w przekroju podłużnym lewej połowy moszny pokazuje owalną zmianę (strzałka) o echogeniczności zbliżonej do echogeniczności znajdującego się obok jądra



Ryc. 2. Badanie w opcji kolorowego dopplera uwidocznia podobny wzorec przepływu w zmianie (strzałka) i w jądrze



Ryc. 3. Immunobarwienie: estrogen  $\times 100$ , odczyn dodatni w komórkach fibroblastycznych podścieliska bez cech atypii oraz odczyn negatywny dla kanałów naczyniowych

Po usunięciu guza z dostępu pachwinowego stwierdzono owalną, otorebkowaną zmianę o wymiarach  $3,5 \times 2,0 \times 2,0$  cm. Na przekroju w centrum zmiany odnotowano obecność brunatnożółtej tkanki śluzowatej. W badaniu mikroskopowym dobrze odgraniczoną, nie-torbielowatą zmianę otaczała gęsta warstwa włóknisto-kolagenowa, tworząca pseudotorebkę. W strukturze zmiany naczynia różnych rozmiarów wyścielone były komórkami śródbłonkowymi bez cech atypii. Pomiędzy nimi stwierdzono rozrost komórek wrzecionowatych z naprzemiennym utkaniem bogato- i ubogokomórkowym. Nie odnotowano oznak podziałów mitotycznych w obrębie komórek wrzecionowatych, ale wykazano silnie dodatni odczyn dla CD34, a w większości jąder komórek guza stwierdzono ekspresję estrogenu i progesteronu (Ryc. 3). Odczyn dodatni odnotowano także dla białek SMA i S100. Wyniki analiz wskazywały na rozpoznanie okołojądrowego guza typu AMF. Przebieg pooperacyjny był niepowikłany.

## Omówienie

W 1992 roku Fletcher i wsp.<sup>(3)</sup> jako pierwsi opisali nowy rodzaj łagodnego nowotworu mezenchymalnego, zwanego AMF, występującego w obrębie żeńskiego układu rozrodczego. Ten sam guz rozwijający się w męskim układzie rozrodczym początkowo nazwano naczylniakowłóknikiem komórkowym, ale po przedstawieniu przez Laskina i wsp. serii 11 przypadków w roku 1998<sup>(4)</sup> nazwę zmieniono na „guz typu AMF”, ze względu na jego podobieństwo do AMF rozpoznawanego u kobiet. Zmiany tego typu są zwykle powierzchniowe i dobrze odgraniczone, o średnicy od 2,5 do 14,0 cm<sup>(5)</sup>. Guzy typu AMF charakteryzują się łagodnym przebiegiem klinicznym, są rzadko inwazyjne i zwykle występują w 5.–6. dekadzie życia. Do ich rozwoju najczęściej dochodzi w okolicy pachwinowej, a następnie w worku mosznym<sup>(6)</sup>. W tym drugim przypadku wstają poza jądrzem i najądrzem.

Histologicznie guz wykazuje cechy bogatego unaczynienia i okołonaczyniowego szkliwienia. Zmiana składa się z komórek wrzecionowatych, praktycznie bez cech aktywności mitotycznej lub atypii. W analizie immunohistochemicznej stwierdza się dodatnią reakcję dla białka CD34 i desminy, a także silną reakcją dla wimentyny, aktywność mięśniowo specyficznej oraz receptorów progesteronowych i estrogenowych<sup>(5,7)</sup>.

W przypadku guzów typu AMF zaleca się szeroką resekcję. Nawrót nowotworu opisano tylko w jednym przypadku 13 lat po zabiegu<sup>(4)</sup>. Guza typu AMF należy odróżnić od agresywnego naczylniakoszluzaka, który również może rozwinąć się w okolicy pachwin i moszny, ale cechuje się wysokim ryzykiem nawrotu oraz złośliwym, miejscowo naciekającym rozrostem. AMF charakteryzuje się wyższą komórkowością, większą liczbą naczyń krwionośnych oraz częstszą obecnością komórek wrzecionowatych w porównaniu z agresywnym naczylniakoszluzakiem<sup>(1)</sup>.

Poza naczylniakoszluzakiem należy wziąć pod uwagę wiele innych nowotworowych i nienowotworowych zmian

niekomunikujących się z jądrem czy najądrzem<sup>(7)</sup>. Zmiany zawierające w swojej strukturze komórki tłuszczowe sugerują rozpoznanie tłuszczaka, tłuszczakomięśnaka bądź guza typu AMF. Obecność tkanki tłuszczowej stwierdza się w 24–56% przypadków guza typu AMF, lecz nie stanowi to jego głównej cechy<sup>(4)</sup>. Inne łagodne zmiany mezenchymalne to mięśniak gładkokomórkowy i rzekomy guz włóknisty. Zmiany złośliwe występują rzadziej niż guzy łagodne, a większość z nich to mięsaki wywodzące się z powrózka nasiennego<sup>(7)</sup>. Ponieważ mezenchymalne guzy pozajądrowe mogą być zarówno łagodne, jak i złośliwe i mogą rozwinąć się u pacjentów w wieku powyżej 60 lat, w naszym przypadku nie można było wykluczyć zmiany złośliwej.

Guzy typu AMF opisywano wcześniej w niewielkich grupach chorych (Laskin i wsp.<sup>(4)</sup> oraz Isawa i Fletcher<sup>(3)</sup>) i w pojedynczych przypadkach. Jednak niewiele prac dotyczyło cech obrazowych guzów tego typu, a jeśli chodzi o obraz w badaniu ultrasonograficznym, danych jest jeszcze mniej. W pracy dotyczącej guza typu AMF w okolicy pachwinowej badanie CT z kontrastem wykazało względnie jednorodny obraz z ogniskami hipodensyjnymi. W badaniu MR w tym samym przypadku odnotowano ogniska o wysokiej intensywności sygnału na obrazach T1-zależnych, które odpowiadały tkance tłuszczowej na obrazach T1-zależnych z tłumieniem sygnału tłuszczu. Intensywne wzmocnienie po podaniu gadolinu odzwierciedla wysokie unaczynienie tego typu zmian<sup>(1)</sup>.

W badaniu ultrasonograficznym wcześniej opisywano niejednorodną echostrukturę i minimalny przepływ w badaniu

kolorowym dopplerem<sup>(1,5)</sup>. W naszym przypadku guz był dobrze odgraniczony, izoechogeniczny i o minimalnie niejednorodnej strukturze w porównaniu z jądrem, a badanie dopplerowskie wykazało taki sam przepływ jak w jądrach. Na podstawie tych cech można wnioskować o łagodnym charakterze zmiany, choć nie można było wykluczyć złośliwości. Niemniej zarówno u naszego pacjenta, jak i w tych niewielu wcześniej opisywanych przypadkach cechy zmiany nie pozwalają na ustalenie takiego rozpoznania ani na określenie nowotworowego charakteru zmiany. Przez podobieństwo do jądra pod względem kształtu, obrazu ultrasonograficznego i przepływu w diagnostyce różnicowej uwzględniono poliorchię.

## Podsumowanie

Guzy typu angiomyofibroblastoma to rzadka, łagodna zmiana pochodzenia mezenchymalnego, która może rozwinąć się w okolicy pachwin, moszny i krocza u mężczyzny<sup>(1)</sup>, zwykle w 5.–6. dekadzie życia. W przedstawionym przypadku opisano cechy obrazu ultrasonograficznego oraz nietypową lokalizację zmiany w worku mosznowym.

## Konflikt interesów

*Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść niniejszej publikacji oraz rościć sobie do niej prawo.*

## Piśmiennictwo

1. Maruyama M, Yoshizako T, Kitagaki H, Araki A, Igawa M: Magnetic resonance imaging features of angiomyofibroblastoma-like tumor of the scrotum with pathologic correlates. *Clin Imaging* 2012; 36: 632–635.
2. Miyajima K, Hasegawa S, Oda Y, Toyoshima S, Tsuneyoshi M, Motooka M *et al.*: Angiomyofibroblastoma-like tumor (cellular angiofibroma) in the male inguinal region. *Radiat Med* 2007; 25: 173–177.
3. Fletcher CD, Tsang WY, Fisher C, Lee KC, Chan JK: Angiomyofibroblastoma of the vulva. A benign neoplasm distinct from aggressive angio-myxoma. *Am J Surg Pathol* 1992; 16: 373–382.
4. Laskin WB, Fetsch JF, Mastofi FK: Angiomyofibroblastomalike tumor of the male genital tract: analysis of 11 cases with comparison to female angiomyofibroblastoma and spindle cell lipoma. *Am J Surg Pathol* 1998; 22: 6–16.
5. De Souza LR, Filho EC, Braga WP, Martins TP, De Nicola H: Angiomyofibroblastoma-like tumor of the inguinal canal. *J Ultrasound Med* 2009; 28: 1269–1272.
6. Ding G, Yu Y, Jin M, Xu J, Zhang Z: Angiomyofibroblastoma-like tumor of the scrotum: A case report and literature review. *Oncol Lett* 2014; 7: 435–438.
7. Wolfman DJ, Marko J, Gould CF, Sesterhenn IA, Lattin GE Jr: Mesenchymal extratesticular tumors and tumorlike conditions: from the radiologic pathology archives. *Radiographics* 2015; 35: 1943–1954.