

Otrzymano:  
30.09.2018  
Zaakceptowano:  
03.11.2018  
Opublikowano:  
28.06.2019

## Śródoperacyjna zmiana sposobu postępowania na podstawie obrazu ultrasonograficznego przyzwojaka pęcherza moczowego – opis przypadku

### Intraoperative decision to change the course of management based on an ultrasonographic image of urinary bladder paraganglioma – a case study

Waldemar Białek<sup>1,2</sup>, Piotr Kawecki<sup>3</sup>, Katarzyna Dyndor<sup>3</sup>, Lech Wronecki<sup>4</sup>, Sławomir Rudzki<sup>1</sup>

<sup>1</sup> *Klinika Chirurgii Ogólnej, Transplantacyjnej i Leczenia Żywnieniowego, Uniwersytet Medyczny w Lublinie, Lublin, Polska*

<sup>2</sup> *Oddział Urologii, Centrum Onkologii Ziemi Lubelskiej im. św. Jana z Dukli, Lublin, Polska*

<sup>3</sup> *Zakład Diagnostyki Obrazowej, 1 Wojskowy Szpital Kliniczny, Lublin, Polska*

<sup>4</sup> *Zakład Patologii Nowotworów, Centrum Onkologii Ziemi Lubelskiej im. św. Jana z Dukli, Lublin, Polska*

*Adres do korespondencji: Waldemar Białek, Oddział Urologii, Centrum Onkologii Ziemi Lubelskiej im. św. Jana z Dukli, ul. Jaczewskiego 7, 20-090 Lublin; tel. +48 81 454 1170; e-mail: wald@mp.pl*

DOI: 10.15557/JoU.2019.0025

#### Abstract

This case study concerns a 69-year-old woman qualified for transurethral resection of a primary tumor in a urinary bladder. Since a cystoscopic image did not correspond with typical urothelial carcinoma, an intraoperative ultrasonographic transrectal imaging was carried out, on the basis of which it was believed to be urinary bladder paraganglioma. Endoscopic treatment was abandoned. The patient was directed for further examination and next, on suspicion of extra-bladder pheochromocytoma, scheduled for open surgery. Due to the location and range of the tumor, and systemic conditions, a radical cystectomy and Bricker's suprapvesical ureteroileal conduit were carried out. A postoperative histopathological examination confirmed the pheochromocytoma character of the urinary bladder tumor.

#### Słowa kluczowe

pryzwojak pęcherza moczowego, sonocystoskopia, ultrasonografia śródoperacyjna, ultrasonografia trójwymiarowa

#### Keywords

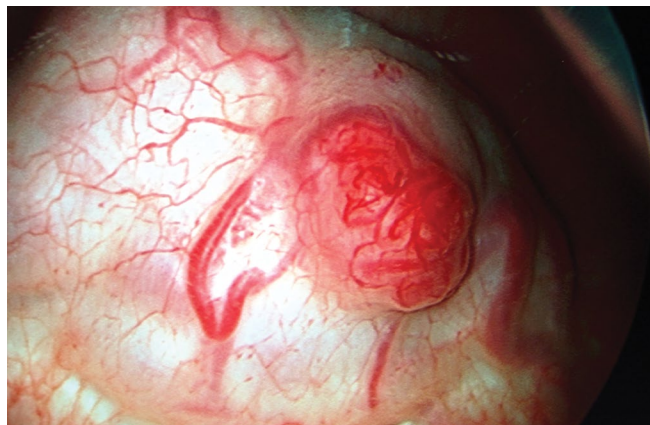
urinary bladder paraganglioma, sonocystoscopy, intraoperative ultrasonography, three-dimensional ultrasonography

## Opis przypadku

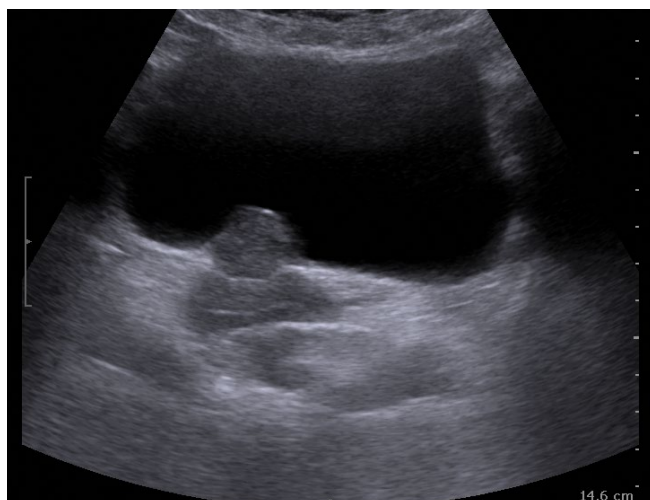
Pacjentka, lat 69, została przyjęta na oddział urologii z powodu pierwotnego guza pęcherza moczowego. Zmiana egzofityczna została rozpoznana w przezbrzusznym badaniu ultrasonograficznym, wykonanym po epizodzie bezobjawowego krwimoczku. Na podstawie badania USG pacjentkę zakwalifikowano do przezcewkowej elektrosekcji nowotworu. W trakcie zabiegu stwierdzono guz położony na ścianie tylnej pęcherza, o średnicy około 25 mm, o gładkiej powierzchni, z bogatą siecią krętych naczyń

podśluzówkowych (Ryc. 1). Ponieważ obraz cystoskopowy nie odpowiadał typowej zmianie wywodzącej się z nabłonka przejściowego, wykonano śródoperacyjne badanie ultrasonograficzne z dostępu przezpochwowego (Ryc. 2–4).

W badaniu ultrasonograficznym stwierdzono guz o średnicy 25 mm, z podejrzeniem naciekania przez ścianę pęcherza moczowego w kierunku przedniej ściany pochwy. W opcji kolorowego dopplera rejestrowano bardzo bogaty sygnał przepływu naczyniowego, niespotykany w guzach urotelialnych (Ryc. 5, 6).



**Ryc. 1.** Obraz cystoskopowy guza pęcherza moczowego. Zwraca uwagę bardzo bogata sieć naczyń podśluzówkowych, niezmieniona śluzówka w sąsiedztwie nowotworu



**Ryc. 2.** Obraz pęcherza moczowego w badaniu przezbrzusznym, w płaszczyźnie poprzecznej. Guz przerastający ścianę pęcherza, przylegający do szyjki macicy. Badanie wykonano aparatem ProFocus Ultraview, BK Medical, głowicą 8820e, 5 MHz



**Ryc. 3.** Obraz pęcherza moczowego w badaniu przezbrzusznym, w płaszczyźnie strzałkowej. Guz przerastający ścianę pęcherza, przylegający do szyjki macicy. Badanie wykonano aparatem ProFocus Ultraview, BK Medical, głowicą 8820e, 5 MHz

Przewidując nieradykalność resekcji przezcewkowej oraz ryzyko wystąpienia przetoki pęcherzowo-pochwowej, odstąpiono od resekcji przezcewkowej. Ze względu na bardzo bogate unaczynienie zmiany nie wykonano biopsji pętlą resektoskopu, obawiając się intensywnego krwawienia z nowotworu. Nie przeprowadzono również biopsji przezpochwowej gruboigłowej z uwagi na ryzyko uzyskania wycinków niskiej jakości z powodu ażurowego, naczyniowego utkania zmiany.

Dodatkowym powodem rezygnacji z resekcji próbnej oraz biopsji było podejrzenie, że guz ma charakter pheochromocytoma, a interwencja operacyjna bez odpowiedniego przygotowania pacjentki w aspekcie internistycznym może skutkować przełomem nadciśnieniowym. Ponadto ze względu na podejrzenie naciekania pozapęcherzowego należałoby rozważyć operację otwartą, na którą pacjentka nie wyrażała zgody.

Po zabiegu poinformowano pacjentkę o przyczynach odstąpienia od resekcji przezcewkowej oraz o potrzebie dalszej diagnostyki (Ryc. 7–9). Wykonano badanie tomograficzne jamy brzusznej i miednicy (Ryc. 10, 11) oraz badanie rezonansu magnetycznego miednicy (Ryc. 12, 13). Skierowano pacjentkę na konsultację endokrynologiczną.

Pacjentkę przygotowano do leczenia operacyjnego otwartego, planując resekcję narządu rodowego oraz przylegającej części pęcherza moczowego wraz z guzem.

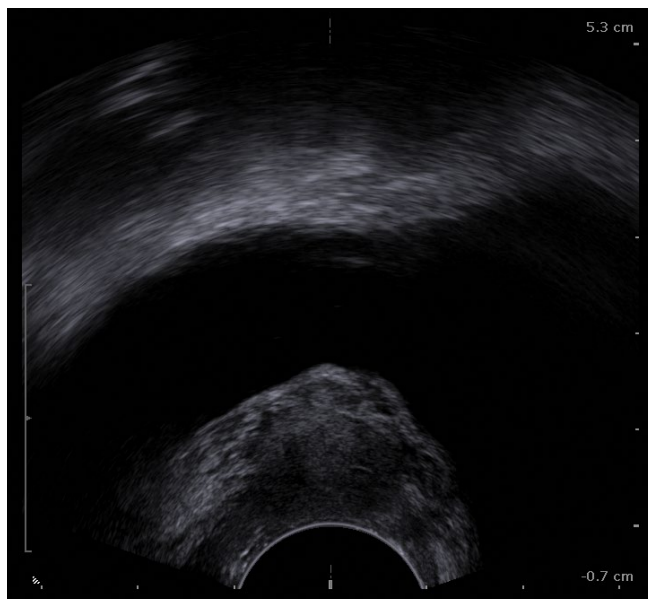
Ostatecznie przeprowadzono radykalną cystektomię, resekcję macicy z przydatkami oraz wytworzono odprowadzenie moczu przez ureteroileokutanostomię metodą Brickera. Okres pooperacyjny przebiegał prawidłowo.

W pooperacyjnym badaniu histopatologicznym stwierdzono przyzwojaka pęcherza moczowego (paraganglioma). Wykonano odczyny immunohistochemiczne: chromogranina+, synaptofizyna+, wimentyna+, S100+, NSE+, CK–, CK7–, CK20–, CK5/6–, CD10–, HMW CK–. Guz zajmował niemal całą grubość mięśniówki pęcherza moczowego. Nie opisano naciekania tkanek okołopęcherzowych. Nie stwierdzono również ognisk martwicy i mitoz w przekrojach guza.

## Dyskusja

Przyzwojaki lub pozanadnerczowe pheochromocytoma stanowią około 15% wszystkich guzów chromochłonnych. Przyzwojaki pęcherza moczowego stanowią 6% wszystkich paraganglioma i 0,06% wszystkich guzów pęcherza moczowego<sup>(1)</sup>.

Pacjentka została zakwalifikowana do przezcewkowej elektroresekcji guza pęcherza stwierdzonego w przezbrzusznym badaniu ultrasonograficznym pęcherza moczowego. W badaniu przezbrzusznym wykonanym w innym ośrodku stwierdzono zmianę egzofityczną o szerokiej podstawie, bez powierzchniowych kalcyfikacji;



Ryc. 4. Obraz pęcherza moczowego w badaniu przezpochwowym, w płaszczyźnie poprzecznej. Guz wydaje się naciekać ścianę pochwy. Badanie wykonano aparatem ProFocus Ultraview, BK Medical, głowicą 8818, 12 MHz

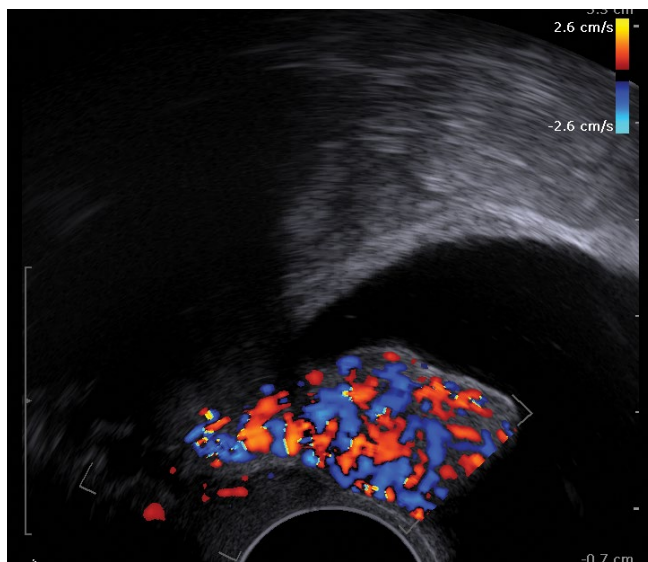


Ryc. 5. Obraz pęcherza moczowego w badaniu przezpochwowym, w płaszczyźnie poprzecznej w opcji dopplera kolorowego. Zwraca uwagę bardzo bogata sieć naczyń krwionośnych zaopatrujących guz. Badanie wykonano aparatem ProFocus Ultraview, BK Medical, głowicą 8818, 12 MHz

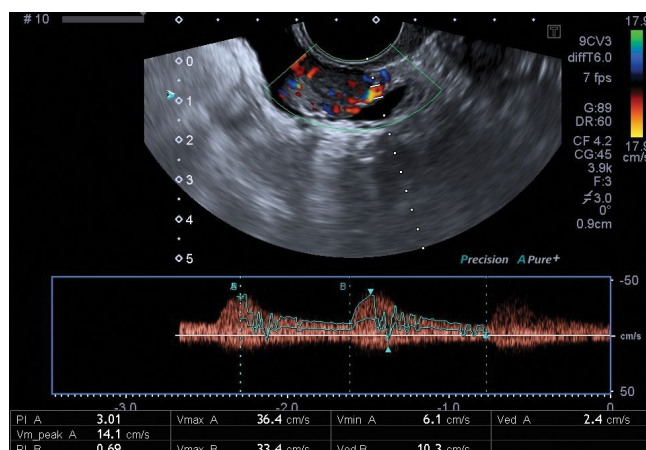
tego rodzaju obraz może odpowiadać nowotworowi uropitelialnemu. W przypadku nowotworów przejściowo-nabłonkowych występowanie epizodów intensywnego krwimoczu jest częste. Dodatkowo pacjentka od ponad 40 lat paliła co najmniej 20 papierosów dziennie, była więc w grupie zwiększonego ryzyka rozwoju nowotworów przejściowonabłonkowych. Pacjentka nie podawała, aby w związku z nadmiernym wypełnieniem pęcherza

moczowego podczas mikcji lub po występowały epizody wzrostu ciśnienia krwi, przyspieszenie akcji serca lub złego samopoczucia, które mogą się wiązać z występowaniem przyzwójaka pęcherza moczowego<sup>(2)</sup>. Zdarzały się epizody wzrostu ciśnienia tętniczego krwi do wartości 180/100 mmHg, które pacjentka kojarzyła z nieregularnym przyjmowaniem leków przeciwnadciśnieniowych.

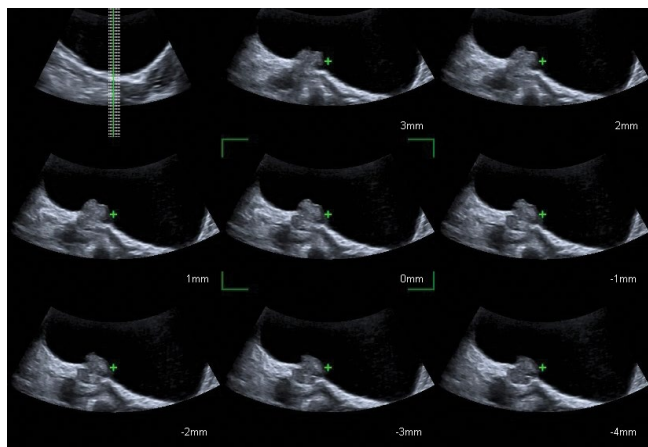
W obrazie cystoskopowym, ku tyłowi od wału międzymoczowodowego, stwierdzono guz o średnicy 20–25 mm, pokryty prawidłową śluzówką, jednak z bardzo rozwiniętą siecią naczyń podśluzówkowych. W różnicowaniu należało



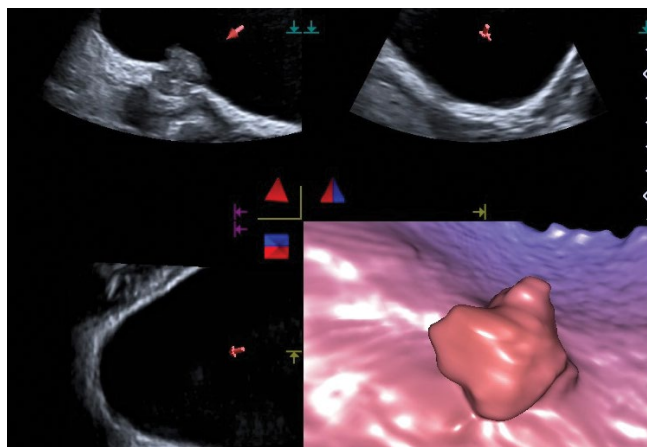
Ryc. 6. Obraz pęcherza moczowego w badaniu przezpochwowym w płaszczyźnie strzałkowej w opcji dopplera kolorowego. Zwraca uwagę bogata sieć naczyń krwionośnych zaopatrujących guz od strony szyjki macicy. Badanie wykonano aparatem ProFocus Ultraview, BK Medical, głowicą 8818, 12 MHz



Ryc. 7. Obraz pęcherza moczowego w badaniu przezpochwowym w płaszczyźnie strzałkowej w opcji dopplerowskiej ze spektrum przepływu krwi w naczyniu zaopatrującym guz (badanie wykonane kilka dni po badaniu śródoperacyjnym). Badanie wykonano aparatem Toshiba Aplio 500, głowicą endowaginalną 9 MHz



**Ryc. 8.** Skany pęcherza moczowego w badaniu przezbrzusnym dokonane przy użyciu głowicy objętościowej pozwalają precyzyjnie ocenić zasięg nowotworu w stosunku do narządu rodnegu. Badanie wykonano aparatem Toshiba Aplio 500, głowicą 9CV3



**Ryc. 9.** Rekonstrukcja trójwymiarowa ścian pęcherza moczowego wraz z guzem dokonana dzięki skanowaniu głowicą objętościową. Wizualizacja ultrasonograficzna wnętrza pęcherza moczowego – sonocystoskopia wiernie odpowiada cystoskopii. Badanie wykonano aparatem Toshiba Aplio 500, głowicą 9CV3

uwzględnić nowotwory naciekające pęcherz moczowy od strony narządu rodnegu, przerzuty nowotworowe z innych narządów, nowotwory wywodzące się z tkanki mięśniowej lub łącznej, w tym guzy naczyniowe oraz guzy wywodzące się ze zwojów nerwowych<sup>(3)</sup>.

Śródoperacyjne badanie USG wynikało z potrzeby szczegółowej oceny wielkości zmiany i jej relacji do struktur sąsiadujących w aspekcie możliwości radykalnej resekcji z dostępu przezcewkowego. Wprawdzie badanie przezbrzusne pęcherza moczowego sugerowało, że nowotwór nacieka przez całą grubość ściany pęcherza, dopiero ultrasonografia przezpochwowa ujawniła, że nowotwór nie tylko przerasta ścianę pęcherza moczowego, ale również istnieje ryzyko naciekania przedniej ściany pochwy i szyjki macicy. W takiej sytuacji próba przezcewkowej resekcji zmiany zakończyłaby się albo nieradykalną resekcją nowotworu, albo wytworzeniem

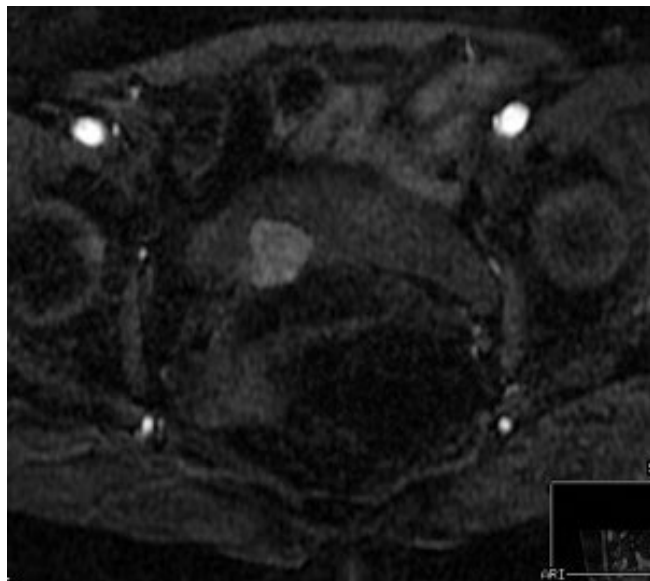
przetoki pęcherzowo-pochwowej. Badanie w opcji dopplerowskiej wykazało, że guz charakteryzuje się wyjątkowo gęstą siecią naczyń oraz bardzo intensywnym przepływem krwi, nieadekwatnym do wielkości zmiany, co mogło sugerować naczyniaka lub przyzwojaka pęcherza moczowego. Na podstawie badania ultrasonograficznego nie było możliwe rozstrzygnięcie, czy bogate unaczynienie zmiany ma charakter łagodnego naczyniaka czy też przyzwojaka pęcherza moczowego. Wprawdzie w przypadku niewielkich naczyniaków biopsja endoskopowa, resekcja i fulguracja są bezpieczne i nie prowadzą do nawrotów<sup>(4)</sup>, podobne postępowanie w przypadku nowotworów chromochłonnych może prowadzić do zagrażającego życiu pacjenta przełomu nadciśnieniowego. Próba przezcewkowej resekcji częściowej przyzwojaka w celu pobrania wycinków do badania histopatologicznego prowadziłaby do bardzo intensywnego krwawienia śródoperacyjnego, wymuszającego głęboką koagulację



**Ryc. 10.** Badanie TK z dożylnym podaniem środka cieniującego, faza tętnicza, przekrój osiowy. W ścianie trzonu pęcherza moczowego po stronie prawej widoczna jest gładko obrysowana, silnie wzmacniająca się struktura tkankowa odpowiadająca pozanadnerczowemu guzowi chromochłonnemu (phaeochromocytoma)



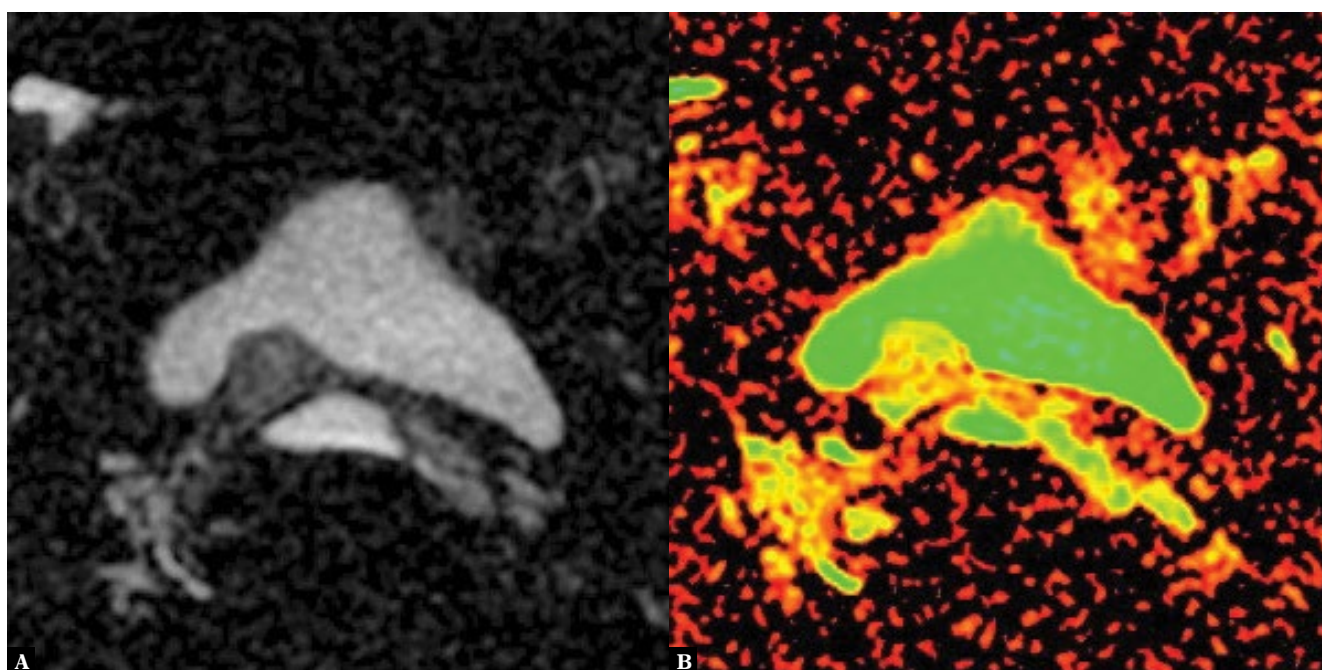
**Ryc. 11.** Badanie TK z dożylnym podaniem środka cieniującego, faza opóźniona po 15 minutach, przekrój osiowy. W ścianie trzonu pęcherza moczowego po stronie prawej widoczny jest ubytek wypełnienia odpowiadający pozanadnerczowemu phaeochromocytoma



**Ryc. 12.** Pozanadnerczowy guz chromochłonny w badaniu rezonansu magnetycznego w przekroju osiowym. W T1-zależnej sekwencji echa gradientowego z saturacją sygnału tkanki tłuszczowej i z dożylnym podaniem paramagnetycznego środka kontrastującego uzyskano potwierdzenie obecności silnie wzmacniającego się pozanadnerczowego guza chromochłonnego

ściany pęcherza, czego operator był świadkiem w przeszłości<sup>(5)</sup>. Natomiast wykonanie przezpochwowej biopsji gruboigłowej z ażurowego guza naczyniowego nie gwarantowałyby uzyskania wycinków jakości wystarczającej do oceny histopatologicznej.

Niezwłocznie skierowano pacjentkę na badania tomografii komputerowej jamy brzusznej i miednicy oraz rezonansu magnetycznego miednicy, których wnioski były zbieżne z przezpochwową oceną ultrasonograficzną. Pacjentkę skierowano na oddział endokrynologiczny w celu oceny aktywności hormonalnej, wykonania badania scyntygraficznego układu adrenergicznego za pomocą metaiodobenzylguanidyny znakowanej jodem radioaktywnym (MIBG-J131) oraz włączenia odpowiedniego leczenia nadciśnienia tętniczego<sup>(6)</sup> jako przygotowania do operacji otwartej. W specjalistycznym ośrodku urologii onkologicznej przeprowadzono radykalną cystektomię, resekcję macicy z przydatkami oraz wytworzono odprowadzenie moczu przez ureteroileokutanęostomię metodą Brickera. Okres pooperacyjny przebiegał prawidłowo. Zakres zabiegu wynikał z podejrzenia naciekania struktur pozapęcherzowych oraz bliskiego sąsiedztwa przypęcherzowych odcinków moczowodów i ujść moczowodowych. W przypadku przyzwojaków położonych odlegle w stosunku do trójkąta pęcherza moczowego powinna być rozważana częściowa resekcja pęcherza moczowego<sup>(7)</sup>. W sytuacji nowotworu chromochłonnego położonego na ścianie bocznej w sąsiedztwie ujścia czy przypęcherzowego odcinka moczowodu resekcja zmiany może wymusić przeszczepienie moczowodu do zdrowej ściany pęcherza. Również w przypadku resekcji przyzwojaków położonych w okolicy wału międzymoczowodowego lub w obrębie trójkąta pęcherza należy rozważać przeszczepienie moczowodów, których ujścia lub przypęcherzowe odcinki mogłyby zostać uszkodzone w trakcie zabiegu lub stać się niedrożne w wyniku bliznowacenia w procesie gojenia pooperacyjnego. Jeśli operacja na pęcherzu prowadzi do znacznego zmniejszenia jego objętości, można uzupełnić ubytek ściany



**Ryc. 13.** Pheochromocytoma w obrazowaniu dyfuzyjnym (dwie wartości b: 50, 600), w korelacji z mapą ADC (apparent diffusion coefficient); współczynnik ten obliczany jest automatycznie przez oprogramowanie stacji diagnostycznej. Skany osiowe przedstawiają patologiczną tkankę z umiarkowanymi cechami restrykcji dyfuzji wody

odpowiednio przygotowanym unaczynionym fragmentem pętli jelita. W przypadku konieczności resekcji całego pęcherza należy brać pod uwagę wytworzenie zastępczego pęcherza jelitowego. W omawianym przypadku przeciwskazaniem do takiego rozwiązania były ograniczenia kognitywne pacjentki<sup>(8)</sup>.

W pooperacyjnym badaniu histopatologicznym stwierdzono przyzwojaka pęcherza moczowego (paraganglioma), zajmującego niemal całą grubość mięśniówki pęcherza moczowego. Nie opisano naciekania tkanek okołopęcherzowych. Nie stwierdzono również ognisk martwicy i mitoz w przekrojach guza.

Niniejszy opis przypadku przyzwojaka pęcherza moczowego jest pierwszym, w którym wygląd nowotworu w cystoskopii oraz badanie ultrasonograficzne spowodowały istotne podejrzenie paraganglioma i właściwą zmianę decyzji leczniczej.

#### 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. Pastor-Guzmán JM, López-García S, Giménez-Bachs JM, Ruiz-Mondejar R, Cañamares-Pabolaza L, Atiénzar-Tobarrá M *et al.*: Paraganglioma of the bladder: Controversy regarding treatment. *Urol Int* 2004; 73: 270–275.
2. Romano IJ, Gentile F, Lippolis A: Postmicturition syndrome: A neglected syndrome dangerous for the bladder and the heart. *J Am Soc Hypertens* 2018; 12: 589–593.
3. Li Y, Guo A, Tang J, Li Q, Fei X, Zhang Y *et al.*: Evaluation of sonographic features for patients with urinary bladder paraganglioma: A comparison with patients with urothelial carcinoma. *Ultrasound Med Biol* 2014; 40: 478–484.
4. Cheng L, Nascimento AG, Neumann RM, Nehra A, Cheville JC, Ramnani DM *et al.*: Hemangioma of the urinary bladder. *Cancer* 1999; 86: 498–504.
5. Bar K, Klijer R, Czekajska-Chehab E, Białek W, Michalak J, Wronecki L: Leczenie radykalne chorych na przyzwojaka pęcherza moczowego o złośliwym przebiegu klinicznym. *Urologia Polska* 2005; 58: 305–307.
6. Leung K, Stamm M, Raja A, Low G: Pheochromocytoma: the range of appearances on ultrasound, CT, MRI, and functional imaging. *AJR Am J Roentgenol* 2013; 200: 370–378.
7. Ping W, HongZhou M, Jie Q, TaiLe J, Hao P, Dan X *et al.*: Laparoscopic resection of retroperitoneal paragangliomas: A comparison with conventional open surgical procedures. *J Endourol* 2016; 30: 69–74.
8. Alfred Witjes J, Lebre T, Compérat EM, Cowan NC, De Santis M, Bruins HM *et al.*: Updated 2016 EAU Guidelines on Muscle-invasive and Metastatic Bladder Cancer. *Eur Urol* 2017; 71: 462–475.