

เนื้องอกอีแมงจิโอเพอริไซโตมาของเนื้อเยื่ออ่อนที่แพร่กระจายไปตับ: รายงานผู้ป่วยและทบทวนสิ่งตีพิมพ์

สุพินดา คูนมี , ตริย์ วงษ์ศิริ, ดรณี จินตกานนท์

ภาควิชาพยาธิวิทยา, คณะแพทยศาสตร์, มหาวิทยาลัยขอนแก่น, ขอนแก่น

Hemangiopericytoma of Soft Tissue with Hepatic Metastasis : A Case Report and Review of the Literature

Supinda Koonmee, Trai Wongsiri, Darunee Jintakanon

Department of Pathology, Faculty of Medicine, Khon Kaen University, Khon Kaen, THAILAND

หลักการและเหตุผล: ตามปกติการแพร่กระจายของมะเร็งเนื้อเยื่ออ่อนมาที่เนื้อเยื่อตับนั้นพบได้น้อยมาก ดังนั้นความผิดปกตินี้จึงเป็นสิ่งที่คล้ายแพทย์และแพทย์ผู้เกี่ยวข้องพึงระลึกไว้เสมอ

วัตถุประสงค์: รายงานอุบัติการณ์เกิดเนื้องอกอีแมงจิโอเพอริไซโตมาของเนื้อเยื่ออ่อนที่แพร่กระจายไปตับ

รูปแบบการศึกษา: เป็นการศึกษาแบบ Retrospective study โดยทบทวนประวัติการรักษาและศึกษาลักษณะทางพยาธิวิทยาของผู้ป่วย ย้อนหลังไป 20 ปี จำนวน 8 รายจากสิ่งส่งตรวจทางพยาธิวิทยาปีละ 8,500 ชิ้น

สถานที่ศึกษา: ภาควิชาพยาธิวิทยา, คณะแพทยศาสตร์, มหาวิทยาลัยขอนแก่น

ผลการวิจัย: รายงานผู้ป่วยหญิงอายุ 68 ปี ที่ได้รับการวินิจฉัยเนื้องอกอีแมงจิโอเพอริไซโตมาที่ต้นขาขวา ซึ่งได้ทำการผ่าตัดก้อนเนื้อออกเมื่อปี พ.ศ. 2534 และพบก้อนที่ตับใน เวลา 12 ปีถัดมาเมื่อเดือนกรกฎาคมปี พ.ศ. 2546 ซึ่งลักษณะทางจุลพยาธิวิทยาเหมือนกับก้อนที่ต้นขาขวาก่อน ดังนั้นจึงให้การวินิจฉัยว่าเป็นเนื้องอกอีแมงจิโอเพอริไซโตมาที่แพร่กระจายไปตับ สองปีหลังจากผ่าตัดเอาก้อนเนื้องอกออกยังไม่พบการแพร่กระจายหรือการกลับเป็นซ้ำของโรคอีก จากการศึกษาพบรายงานเนื้องอกอีแมงจิโอเพอริไซโตมาของเนื้อเยื่ออ่อนที่แพร่กระจายไปตบน้อยมาก มีรายงานในสิ่งตีพิมพ์ 22 ราย เป็นเนื้องอกอีแมงจิโอเพอริไซโตมาเยื่อหุ้มสมอง ที่แพร่กระจายไปยังนอกสมอง เช่น ตับ ปอด ไต และกระเพาะอาหาร

Background: Hemangiopericytoma is the one type of soft tissue sarcomas. This is very rare and uncommon type of tumor. So The surgeon and another doctor should be reminded to keep in mind.

Objective: To report a case of metastatic hemangiopericytoma metastasized from the right inguinal region to the liver in 12 years.

Design: Retrospective study by review of 170,000 medical records and pathological study.

Setting: Department of Pathology, Faculty of Medicine, Khon Kaen University, Khon Kaen province.

Result: We reported a case of a 68-year old female who was initially diagnosed with hemangiopericytoma of soft tissue at her right inguinal region which was surgically excised. However twelve years later in July 2003, a tumor mass was discovered in her liver which the histology characterized mostly similar to the earlier right inguinal tumor. Thus we diagnosed the patient with metastatic hemangiopericytoma in the liver. Two years after the removal of the tumor, she has no evidence of the other metastasis or recurrence. Twenty two cases of extracranial metastasis of hemangiopericytomatous meningioma to the liver, lung, kidney, and stomach have been reported in the literature, but hepatic resections of this metastasizing tumor have been very rare.

Conclusion: We reported the very rare case of histopathologically-proven metastasized hemangiopericytoma from the right inguinal region to the liver.

สรุป: เราได้พบผู้ป่วยหญิงอายุ 80 ปีเป็นเนื้องอกฮีแมงจิโอเพอริไซโตมาที่บริเวณอิน-โก-นอลแพร่กระจายไปยังตับภายในเวลา 12 ปี

คำสำคัญ: ฮีแมงจิโอเพอริไซโตมา, มะเร็งแพร่กระจายไปตับ, เนื้องอกสปินเดิลเซลล์, เนื้องอกตับ

Key words: Hemangiopericytoma; Hepatic metastasis; Spindle cell tumor; Liver tumor. liver

ศรีนครินทร์เวชสาร 2549; 21(4): 374-7 • Srinagarind Med J 2006; 21(4): 374-7

Introduction :

Hemangiopericytoma is a rare tumor type, first described in 1942 by Stout and Murray¹. It originates in the pericytes, a specific cell type identified by Rouget in 1873 and subsequently described by Zimmermann in 1923². Hemangiopericytoma is more likely to arise in the lower extremities, pelvis, or retroperitoneum³, it may very rarely arise in the liver. Hepatic metastasis is extremely rare. This sarcoma arises from cells located around the blood vessels (Zimmerman's pericytes). These are cells with smooth muscle characteristics that are highly arborized and arranged alongside capillary vessels. They have a contractile capability and are responsible for vessel caliber regulation, modulating both flux and permeability².

Hemangiopericytomas are rare spindle cell tumors and account for 2-3% of all soft tissue sarcomas. These account for about 1% of all vascular tumors and CNS tumors⁴. About 5% of such cases occur in the nasal cavity and usually consist of well-differentiated tumors with low potential for local recurrence or metastasis. Hemangiopericytoma usually evolves with slow and non-painful growth that progresses towards nasal obstruction and epistaxis, which are the most common symptoms².

Here we report a case of hemangiopericytoma of soft tissue presenting with liver metastasis.

Case report :

A 68 years old female presented with abdominal mass, near umbilical area for 8 months. Abdominal ultrasonography showed a midline heteroechoic mass measuring 125x83 mm in size, impression as ovarian tumor but surgical exploring found as liver mass at left lobe and liver mass excisional biopsy were taken. The gross examination showed well circumscribed solid mass, firm, gray-white tissue.

Histological report of biopsy from liver mass in low power view showed vascular spaces of the staghorn appearance, spindle shaped plump tumor cells proliferating in sheets with high degree of cellularity (Fig.1). The high power view showed vesicular nuclei with nucleoli, 3-5 mitotic figures per high power field (Fig.2). The area of synovial sarcoma-like pattern is present (Fig.3). The immunohistochemistry study showed neoplastic cells reacting positively to vimentin, S-100 and factor XIII, epithelial membrane antigen, cytokeratin, CD-34 and desmin were absent.

Later on, from reviewing the patient's history information revealed that she had presented a soft tissue mass at right inguinal area and surgically excised 12 years ago in 1991. The initially diagnosis was hemangiopericytoma of soft tissue (Fig.4). Histological characteristic of liver mass is similar to that of her inguinal tumor. The conclusion was hemangiopericytoma of soft tissue with hepatic metastasis. From the last excision in 2003, the patient has no evidence of any other metastasis or recurrence for two years after the removal of the tumor.

Discussion :

Hemangiopericytoma is most common in low extremity especially thigh, pelvis and retroperitoneum¹. Most are deep and majority are found in muscle tissue. Hemangiopericytoma are reported to occur at many other sites in the body including intraosseous⁵, nasal cavity and meninges⁶. Hemangiopericytoma is primarily a tumor of adults and is rare in infants and children. There is a long natural history; peak incidence of tumor is around 6th decade of life. It occurs equally in both sexes and anywhere where there are blood vessels.

It is a lesion which is benign but definitely tumor has a malignant counterpart. Retroperitoneal and meningeal tumor had a higher local recurrence rates when compared to extremity tumor which fare significantly

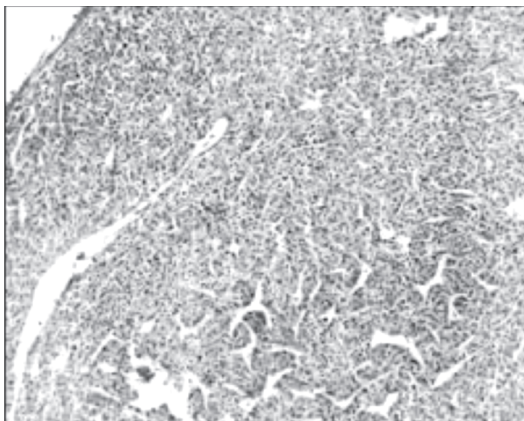


Fig.1 : Proliferation of tumor cells around blood vessels with staghorn appearance (x10X)

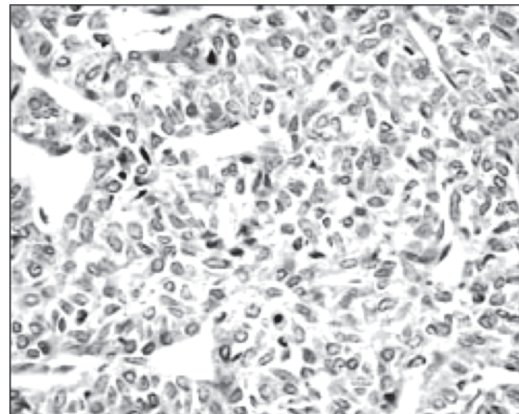


Fig.2 : There are 3-5 mitotic figures in high power field (x40X)

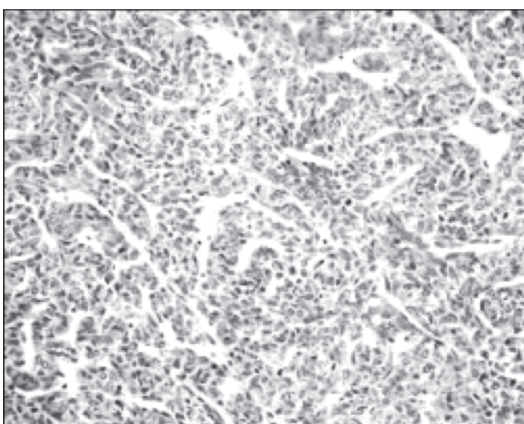


Fig.3 : Synovial sarcoma-like pattern (x20X)

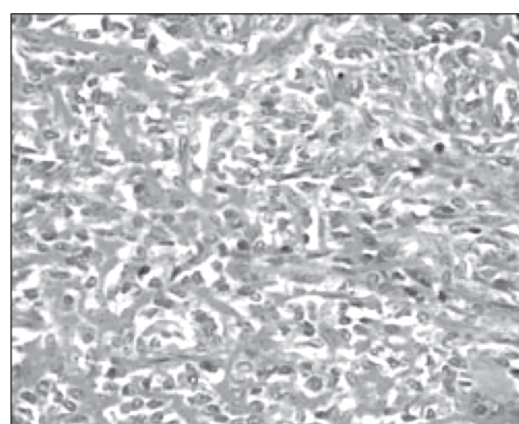


Fig.4 : Previous biopsy of right thigh mass. (x40X)

better⁷. Histological features of aggressive biological behavior are presence of necrosis, pleomorphism, mitoses and vascular invasion. High grade lesions are the ones which usually metastasize, the more common site of metastasis being the lungs, metastasis also occurs to the bones with lymph nodes and liver being the less common sites of metastasis. Neoplastic cells are reactive for vimentin, actin, factor XIII and CD 34. Multiple chromosomal abnormalities have been observed including t(12;19) and t(13;22)¹. Twenty two cases of extracranial metastasis of hemangiopericytomatous meningioma have been reported in the literature, but hepatic resections of this metastasizing tumor have been very rare⁸⁻¹¹.

Acknowledgement :

We would like to thank Professor Scott D. Nelson, chief of Bone and Soft tissue Pathology, UCLA Medical

Center, USA who revealed and provided suggestion for this case.

References

1. Kim BW, Wand HJ, Jeong IH, Ahn SI, Kim MW. Metastatic liver cancer: A rare case. World J. Gastroenterol. 2005 ;21: 4281-4.
2. Carvalho JR, et.al. Head and neck hemangiopericytoma in a child - case report. Sao Paulo Med. J. 2004 ;5:223-6
3. Findik S, Akan H, Baris S, Atici AG, Uzum O, Erkan L. Pre-operative embolization in surgical treatment of a primary hemangio-pericytoma of the rib: A case report. J Korean Med Sci. 2005; 20:316-8.
4. Chakravarty BJ, Munn S, and Lane MR. Hepatic metastasis from meningeal hemangiopericytoma. Aust N Z J Med. 1991;21:884-5.

5. Enzenger FM, Weiss SW. Perivascular Tumors; In Soft Tissue Tumors: Third edition. 1995;Mosby:713-33.
6. Someya M, Sakata KI, Oouchi A, Nagakura H, Satoh M, Hareyama M. et. al. Four cases of meningeal hemangiopericytoma treated with surgery and radiotherapy. Jpn J Clin Oncol 2001;31:548-52.
7. Spitz FR, Bouvets M, Pisters PW, Pollock RE, Feig BW. Hemangiopericytoma : A 20 year single institution experience. Ann Surg Oncol 1998;41:1256-60.
8. Davies C, Schick B, Kronsbein H, and Hendus J. Meningeal hemangiopericytoma with liver metastasis. HNO. 1999;47: 183-7.
9. Kaneko T, Harada A, Isshiki K, Murakami H, Nakao A, Nonami T, .et. al. Hemangiopericytomatous meningioma metastasized to the liver: report of a case and review of the literature. Surg Today. 1993;23:644-8.
10. Noda N, Hasegawa H, Kanai M, Shimizu Y, Yoshida H, Matsumoto T, et. al. : Recurrent hemangiopericytoma of the liver: report of the case ; Surg Today. 1995;25 :72-5.
11. Soares P, Ferlicot S, Laasou K, Castaing D, and Benoit G. Renal and hepatic metastasis from meningeal hemangiopericytoma. Prog Urol. 2003; 13:498-501.

