

КАСЛМАНОВА БОЛЕСТ СЛУЧАЈНО ОТКРИВЕНА У ПЛУЋИМА БОЛЕСНИКА С АЛЕРГИЈСКИМ РИНОСИНУЗИТИСОМ

Јелена СТОЈШИЋ, Светлана КРСТИЋ, Драган СУБОТИЋ,
Татјана ЕМИНОВИЋ, Јелена РАДОЈИЧИЋ

Институт за плућне болести и туберкулозу, Клинички центар Србије, Београд

КРАТАК САДРЖАЈ

Увод Каслманова (*Castleman*) болест је први пут описана 1956. године као медијастинална туморска маса, али етиологија ове болести још није позната. Ова болест може бити солитарног и мултицентричног типа. Солитарна Каслманова болест је хијалино-васкуларног типа, а мултицентрична је плазмоцитног типа.

Приказ болесника Код двадесетпетогодишњег мушкарца случајно је откривена туморска маса у средњем режњу десног плућног крила, која се приказала у виду јасно ограничене сенке, након чега је дијагностикована Каслманова болест. Код болесника је годину дана пре операције дијагностикован алергијски риносинуситис на амброзију. Две године после операције болесника нема знакова рецидива болести, али он и даље пати од алергијског ринитиса.

Закључак Каслманова болест може настати у свим органима у којима се обично налази лимфно ткиво. Најчешће се дијагностикује код младих особа и описује као медијастинална, а ретко као интрапулмонална туморска маса. Солитарни облик болести има добру прогнозу и хируршки је излечив, док мултицентрични и мешовити облик рецидивирају и поред кортизонске, зрачне и цитостатске терапије. Није утврђена повезаност Каслманове болести с алергијском болести, што значи да је приказани младић истовремено боловао од две болести.

Кључне речи: циновска хиперплазија лимфног чвора; ангиофоликуларна хиперплазија; плућа; алергијска болест

УВОД

Каслманова (*Castleman*) болест је позната и под називима ангиофоликуларна хиперплазија, циновска хиперплазија лимфних чворова, ангиоматозни, лимфоидни хаматом [1-3]. Ова болест је први пут описана 1956. године као медијастинална туморска маса [1, 4]. Постоје два хистолошка типа ове болести: хијалино-васкуларни и плазмоцитни тип [1], али и прелазни (мешовити) тип [5]. Хијалино-васкуларни тип је обично локализован и не испољава симптоме. Уколико се јаве симптоми болести, они зависе од величине и локализације захваћених лимфних чворова [1]. Мултицентрични облик је плазмоцитног типа, удружен с инфекцијом хуманим херпесвирусом 8, а јавља се и код особа заражених с *HIV* [1, 6, 7]. Прогноза локализованог типа је добра јер је излечива операцијом, док је прогноза мултицентричног типа неизвесна и поред примењене терапије [4, 6]. Описан је и прелазни (мешовити) хистолошки тип, који је, као и мултицентрични облик, симптоматски и неизвесне прогнозе [5].

ПРИКАЗ БОЛЕСНИКА

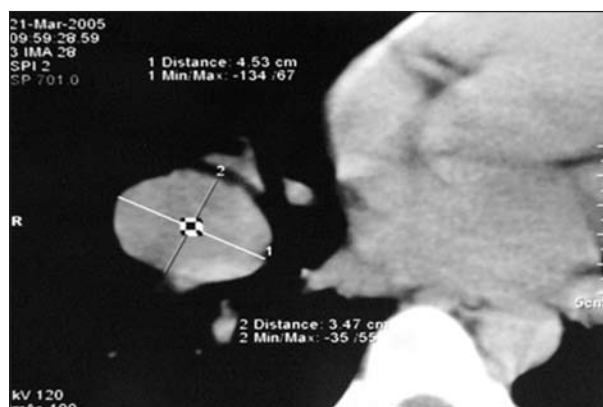
Двадесетпетогодишњи младић је примљен на болничко лечење ради испитивања и операције промене у средњем режњу десног плућног крила. Промена, уочена на радиограму плућа, откривена је током систематског прегледа због пријема у радни однос. Промена се приказала у виду овалне, оштро ограничене

сенке у пројекцији десног хилуса, величине 45×40 mm (Слика 1). Компјутеризованом томографијом грудног коша утврђено је да је јасно ограничен тумор хетеродензна промена, локализована у пројекцији доњег пола хилуса десног плућног крила, бенигних особина (Слика 2).

Бронхоскопском биопсијом није било могуће открити етиологију промене, а транскутаном биопсијом иглом тумор није био доступан. Резултати спирометријских тестова су били у физиолошким границама. Периферна крвна слика и биохемијски налази су били нормалних вредности. На ултразвучном налазу абдомена нису уочене патолошке промене. На основу добијених налаза процењено је да је у питању бениг-



СЛИКА 1. Радиограм грудног коша.
FIGURE 1. Chest X-ray.



СЛИКА 2. Налаз компјутеризоване томографије тумора у десном плућном крилу.

FIGURE 2. CT finding of the tumour in the right lung.

на природа промене, па се приступило дијагностичкој торакотомiji.

Изведена је туморектомија. Брзим замрзавањем исечака ткива туморског чвора закључено је да је реч о лимфоцитној пролиферацији о чијем се биолошком понашању није могло одмах изјаснити. После овако добијеног налаза одлучено је да се примени средња десна лобектомија. Медијастинална лимфаденопатија није забележена.

Солидни чвор је био јасно ограничен од околног паренхима плућа (Слика 3). Хистолошки, у лимфном чвору у плућима дијагностикована је масивна, дифузна пролиферација лимфних фоликула, централно хијалино задебљаних зидова капиlara. Око капиlara су лимфоцити били концентрично поређани. Између умножених лимфних фоликула била је наглашена васкуларна пролиферација (Слика 4).

Резултати тестова на HIV, цитомегаловирус, Епстајн-Бар (*Epstein-Barr*) вирус, херпесвирус и аденовирус после хируршког лечења били су повољни. Вредности имуноглобулина и укупних протеина били су у физиолошким границама. Прегледима после операције није запажен рецидив болести. Две године пре операције код болесника је применом кожных тестова дијагностикована алергијска реакција на амброзију (*Ambrosia artemisiifolia*, *Ambrosia elatior*), која се манифестовала клиничком сликом риносинуситиса.

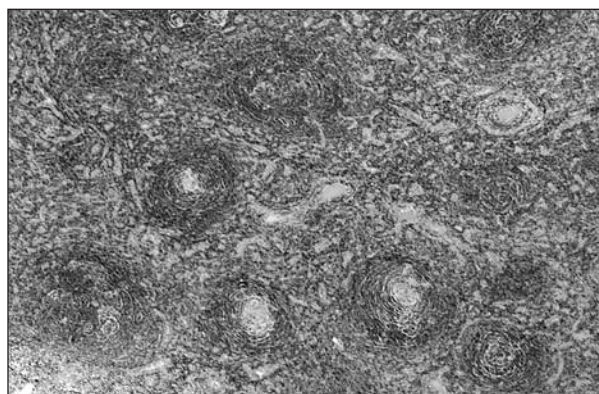
ДИСКУСИЈА

Каслманова болест је први пут описана као медијастинална туморска маса која је захватила лимфне чворове, али порекло ове болести још није откривено. Постоје локализовани или солитарни и мултицентрични облик Каслманове болести. Локализовани облик је хијалино-васкуларни, а мултицентрични облик је обично плазмоцитни [1]. Постоји и облик болести који је мешавина хијалино-васкуларног и плазмоцитног типа [5].

Солитарни облик Каслманове болести се најчешће јавља код младих особа [1, 9]. Овај облик се најчешће

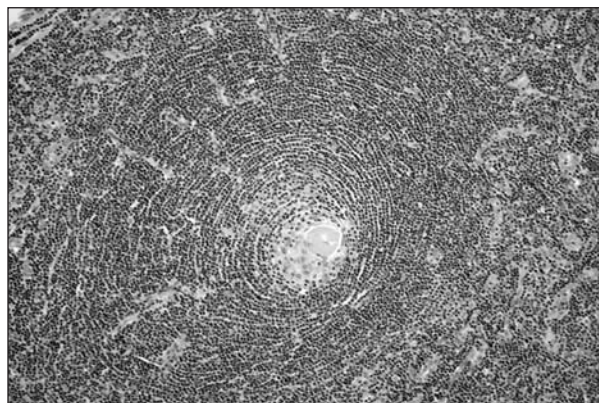
дијагностикује као медијастинална маса, али су описани случајеви локализовани у супраклавикуларној јами, плућима, перикарду, интеркостално, субмандибулно, на врату, у аксилу, паротидној ложи, абдомену, пелвису и ретроперитонеално [4, 8, 9]. Симптоми болести, уколико постоје, зависе од локализације и величине захваћених лимфних чворова [1, 9].

Локализовани плућни облик најчешће настаје у лимфном чвору хилуса плућа. Описани су и случајеви Каслманове болести у интрапулмоналним лимфним чворовима. Ова ненеопластична пролиферација је у плућима неинкапсулирана, али је јасно ограничена и често калцификована [10]. Обично се открива случајно радиографским прегледом [8]. Каслманова болест може бити удружена и са изливом у плеури [5]. Према наводима Тревиса (*Travis*) и Галвина (*Galvin*) [10], интрапулмонални облик Каслманове болести припада групи ненеопластичних лимфних лезија плућа, заједно са интрапулмоналним лимфним чворовима, фоликуларним бронхитисом и лимфоцитном, интерстицијалном пнеумонијом. Каслманова болест се може јавити у једном лимфном чвору локализованом испод плеуре или у више њих, који се код 18% болесника откривају током операције или аутопсијом.



СЛИКА 3. Бројни хиперпластични фоликули са централном артериолом и упадљиво умножени крвни судови између њих у интрапулмоналном лимфном чвору (H&E, x4).

FIGURE 3. Numerous hyperplastic follicles with thickened central arteriola and prominent proliferated blood vessels in intrapulmonary lymph node (H&E, x4).



СЛИКА 4. Хијалинизован зид крвног суда лимфног фоликула окружен је концентричним слојевима лимфоцита (H&E, x10).

FIGURE 4. Hyalinized blood vessel wall surrounded by concentric layers of lymphocytes (H&E, x10).

Код приказаног болесника забележена су сва клиничка и патохистолошка обележја болести према листи коју су сугерисали Јоаким (*Ioachim*) и сарадници [1]. Једина разлика је плућна локализација Каслманове болести, која је дијагностикована код приказаног младића. Локализовани облик Каслманове болести у грудном кошу се традиционално лечи хируршком ексцизијом, торакотомијом, а у последње време и тоталном ексцизијом видео-асистираним торакотомијом као безбеднијим методом [3].

Мултицентрични облик Каслманове болести се најчешће јавља код старих особа, а обично је удружен са другим стањима, најчешће инфекцијама хуманим херпесвирусом 8 и *HIV* [1, 6]. Удружен је и са карциномом плућа, при чему „имитира” метастатски депозит у хиларне и медијастиналне лимфне чворове [12]. Овај облик има лошију прогнозу због могућности рецидива, мултицентричног раста и поред хемотерапије [3].

Прелазни или мешовити облик Каслманове болести је хистолошко-морфолошки мешавина хијалино-васкуларног и плазмоцитног типа, клинички је симптоматски, неизвесног биолошког понашања, а лечи се кортизонском, зрачном и цитостатском терапијом [5].

Није описана повезаност Каслманове болести са алергијским риносинуситисом на полен амброзије у време њеног цветања [13-15].

Код радиографски откривеног добро ограниченог туморског чвора треба посумњати и на Каслманову болест у органима у којима обично постоји лимфно ткиво. Прегледом пресека смрзнутог ткива тумора типична морфолошка слика пружа могућност брзог постављања дијагнозе. Примена хируршке ексцизије је оптималан метод за лечење болесника са Каслмановом болешћу локализованог типа, без обзира на његову локализацију. Познато је да је Каслманова болест удружена са имунодефицијентним стањима и малигнитетом, али није описана могућност да је болест имунолошки одговор на алергијска стања. Закључујемо да је приказани болесник боловао од две боле-

сти истовремено: алергијског ринитиса изазваног поленом амброзије и Каслманове болести.

ЛИТЕРАТУРА

1. Ioachim HA, Ratech H. Castleman lymphadenopathy. In: Ioachim HA, Ratech H. 3rd edition. *Ioachim's Lymph Node Pathology*. Philadelphia: Lippincot Williams&Wilkins; 2002. p.246-53.
2. Sanchez-Cuellar A, de Pedro M, Martin-Granizo R, Berguer A. Castleman disease (giant lymph node hyperplasia) in the maxillofacial region: A report of 3 cases. *Br J Oral Maxillofacial Surg* 2001; 59(2):228-31.
3. Seirafi PA, Ferguson E, Edwards FH. Thoracoscopic Resection of Castleman disease. *Chest* 2003; 123:280-2.
4. Bond SE, Saeed NR, Palka I, Carls FP. Castleman's disease presenting as a midline neck mass. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2003; 56(1):62-4.
5. Hoor TT, Hewan-Lowe K, Miller J, Moss M. Transitional variant of Castleman's disease presenting as a chylous pleural effusion. *Chest* 1999; 115:285-8.
6. Hudnall SD, Chen T, Brown K, Angel T, Schwartz M, Tyring S. Human herpes-8-positive microvenular hemangioma in POEMS syndrome. *Arch Pathol Lab Med* 2003; 127(8):1034-6.
7. Guihot A, Couderc L-J, Agbalika F, et al. Pulmonary manifestation of multicentric Castleman's disease in HIV infection: a clinical, biological and radiological study. *Eur Respir J* 2005; 26:118-25.
8. Sheung-Fat K, Yung-Liang W, Shu-Hang N, et al. Imaging features of atypical thoracic Castleman disease. *Chin Imaging* 2004; 28(4):280-5.
9. Roshong-Denk SL, Bohman LS, Booth RL. A 53-year-old white man right sided supraclavicular lymphadenopathy. *Arch Pathol Lab Med* 2005; 129(7):945-6.
10. Travis WD, Galvin JR. Non-neoplastic pulmonary lymphoid lesion. *Thorax* 2001; 56:964-71.
11. Horio H, Hijima T, Sakaguchi K, Kuwabara K. Mediastinal Castleman disease associated with pulmonary carcinoma, mimicking N2 stage lung cancer. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg* 2005; 53(5):286-9.
12. Pereira TC, Lanehreneau R, Nathan G, Sturgis CD. Pathologic quiz case: large posterior mediastinal mass in a young woman. *Arch Pathol Lab Med* 2001; 125(7):964-7.
13. Ghosh B, Perry MP, Rafnar T, Marsh DG. Cloning and expression of immunologically active recombinant Amb a V allergen of short ragweed (*Ambrosia artemisiifolia*) pollen. *J Immunol* 1993; 150:5391-9.
14. Lowenstein H, Marsh DG. Antigens of *Ambrosia elatior* (short ragweed) pollen. III. Crossed radioimmuno-electrophoresis of ragweed-allergic patients' sera with special attention to quantification of IgE responses *J Immunol* 1983; 130:727-31.
15. Peternel R, Culig J, Srncic L, Mitic B, Vukusic I, Hrga I. Variation in ragweed (*Ambrosia artemisiifolia* L.) pollen concentration in central Croatia, 2002-2003. *Ann Agric Environ Med* 2005; 12(1):11-6.

INCIDENTALLY DETECTED CASTLEMAN DISEASE IN A PATIENT WITH ALLERGIC RHINOSINUSITIS

Jelena STOJŠIĆ, Svetlana KRSTIĆ, Dragan SUBOTIĆ, Tatjana EMINOVIĆ, Jelena RADOJIČIĆ
Institute of Lung Diseases and Tuberculosis, Clinical Centre of Serbia, Belgrade

INTRODUCTION Castleman disease was for the first time described in 1956 as a mediastinal tumour mass. Etiology of this disease is still unknown. The disease can be solitary and multicentric or rarely of a mixed type. The former is often of hyaline vascular type, while the latter is of plasma cell type.

CASE REPORT Castleman disease was diagnosed in a 26-year old male patient when a well defined shadow was incidentally detected in the middle lobe of the right lung. A year before, he was diagnosed with allergic rhinitis to Ambrosia. Two years after surgery the patient was feeling well, and was without any recurrence, however, allergic rhinitis still persisted.

CONCLUSION Castleman disease can occur in any organ containing lymph tissues. Most frequently the disease is described as mediastinal, rarely as an intrapulmonary tumorous mass, and it is most frequently seen in younger persons. The solitary type of Castleman disease is surgical treatable with a prospect of good prognosis, while the multicentric and

mixed types recur despite treatment with cortisone, irradiation and cytostatics. As the association between Castleman disease and allergic diseases has not been confirmed up-to-now, it could be concluded that this patient suffered from two separated diseases.

Key words: giant lymph node hyperplasia; angiofollicular hyperplasia; lungs; allergic disease

Jelena STOJŠIĆ
Institut za plućne bolesti i tuberkulozu
Klinički centar Srbije
Višegradska, 26, 11000 Beograd
Tel.: 011 3635 441
Faks: 011 269 1591
E-mail: jelena.stojisic@kcs.ac.yu