

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD623322>

Multiple biliary microhamartomas diagnosed in an unsuspecting elderly patient

Marina Balbino¹, Manuela Montatore¹, Giacomo Fascia¹, Ruggiero Tupputi², Federica Masino¹, Gianmichele Muscatella¹, Domenico Mannatrizio¹, Giuseppe Guglielmi^{1,2,3}

¹ University of Foggia, Foggia, Italy;

² Dimiccoli Hospital, Barletta, Italy;

³ Casa Sollievo della Sofferenza Hospital, Foggia, Italy

ABSTRACT

Multiple biliary hamartomas are a benign incidental finding in the liver. They are not easily detected if one has never seen them, and if appropriate imaging tests are unavailable, and also can be challenging to differentiate from other liver lesions based on imaging alone. Thus, this study aimed to expand the radiologist's digital image library, enabling a quick and precise differential diagnosis. This paper also highlights the importance of thorough radiological assessment and need for a multidisciplinary approach, involving radiologists, hepatologists, and pathologists, to ensure a precise diagnosis.

The patient presented at the hospital for a computed tomography scan and an abdominal magnetic resonance imaging recommended by his general practitioner to assess the biliary tree (magnetic resonance cholangiopancreatography), owing to persistent abdominal pain. The patient had never undergone an abdominal magnetic resonance imaging previously; hence, the discovery of hepatic lesions was incidental and unexpected.

Magnetic resonance imaging revealed multiple benign lesions in both the hepatic lobes comparable to the Von Meyenburg complex. These lesions are multiple hamartomas and behave differently in all magnetic resonance imaging sequences.

Images acquired with different magnetic resonance imaging sequences were carefully examined. Multiple lesions were found scattered throughout the liver; however, the lesions were benign and consistent with the diagnosis of multiple biliary hamartomas.

Medical practitioners should examine the presence of multiple biliary hamartomas and consider them in the differential diagnosis when patients present with hepatic abnormalities. This can prevent unnecessary interventions and guide appropriate patient management.

Keywords: liver; hamartomas; Von Meyenburg complex; magnetic resonance imaging; diagnostic imaging; magnetic resonance cholangiography; bile duct neoplasms.

To cite this article:

Balbino M, Montatore M, Fascia G, Tupputi R, Masino F, Muscatella G, Mannatrizio D, Guglielmi G. Multiple biliary microhamartomas diagnosed in an unsuspecting elderly patient. *Digital Diagnostics*. 2024;5(2):334–341. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD623322>

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD623322>

Множественные билиарные микрогамартомы, случайно диагностированные у пожилого пациента

M. Balbino¹, M. Montatore¹, G. Fascia¹, R. Tupputi², F. Masino¹, G. Muscatella¹,
D. Mannatrizio¹, G. Guglielmi^{1,2,3}

¹ Университет Фоджи, Фоджа, Италия;

² Dimiccoli Hospital, Барлетта, Италия;

³ Casa Sollievo della Sofferenza Hospital, Фоджа, Италия

АННОТАЦИЯ

Множественные билиарные гамартомы, также называемые комплексами фон Мейенбурга — это доброкачественные новообразования печени, которые могут быть выявлены случайно. Их нелегко обнаружить, если ранее не доводилось с ними встречаться, а также если соответствующие методы визуализации на момент обследования недоступны. К тому же их сложно отличить от других поражений печени на основании визуализационных данных. Таким образом, описание данного клинического случая направлено на пополнение библиотеки цифровых изображений, что позволит радиологу быстро и точно провести дифференциальную диагностику. Кроме того, подчёркивается важность тщательной рентгенологической оценки этого заболевания и необходимость мультидисциплинарного подхода с участием радиологов, гепатологов и патологов для постановки точного диагноза.

Пациент поступил в больницу для проведения компьютерной томографии и магнитно-резонансной томографии брюшной полости по рекомендации терапевта для оценки состояния билиарного дерева (магнитно-резонансная холангио-панкреатография) в связи с постоянными болями в животе. Пациенту никогда ранее не проводили инструментальное обследование брюшной полости, поэтому новообразования печени оказались случайной и неожиданной находкой.

Магнитно-резонансная томография выявила множественные доброкачественные образования в обеих печёночных долях, сопоставимые с комплексами фон Мейенбурга. Эти поражения представляют собой множественные гамартомы и ведут себя по-разному во всех последовательностях сканирования.

В ходе исследования были тщательно изучены изображения, полученные с помощью различных последовательностей магнитно-резонансной томографии. В печени обнаружены множественные очаги поражения с признаками доброкачественности, которые соответствовали диагнозу «множественные билиарные гамартомы».

Практикующие специалисты должны уметь распознать это заболевание и учитывать его при дифференциальной диагностике у пациентов с патологиями печени. Это позволит предотвратить ненужные вмешательства и выбрать правильную тактику ведения пациентов.

Ключевые слова: печень; гамартомы; комплекс фон Мейенбурга; магнитно-резонансная томография; диагностическая визуализация; магнитно-резонансная холангиография; новообразования желчных протоков.

Как цитировать:

Balbino M., Montatore M., Fascia G., Tupputi R., Masino F., Muscatella G., Mannatrizio D., Guglielmi G. Множественные билиарные микрогамартомы, случайно диагностированные у пожилого пациента // Digital Diagnostics. 2024. Т. 5, № 2. С. 334–341. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD623322>

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD623322>

一名老年患者偶然诊断出的多发性胆管微小错构瘤

Marina Balbino¹, Manuela Montatore¹, Giacomo Fascia¹, Ruggiero Tupputi²,
Federica Masino¹, Gianmichele Muscatella¹, Domenico Mannatrizio¹, Giuseppe Guglielmi^{1,2,3}

¹ University of Foggia, Foggia, Italy;

² Dimiccoli Hospital, Barletta, Italy;

³ Casa Sollievo della Sofferenza Hospital, Foggia, Italy

摘要

多发性胆管错构瘤又称 von Meyenburg 复合体，是一种可能偶然发现的良性肝肿瘤。如果以前没有遇到过，而且在检查时没有适当的成像技术，就不容易被发现。根据影像学检查结果，它们也很难与其他肝脏病变区分开来。因此，本病例的描述旨在为数字图像库增添新的内容，使放射科医生能够做出快速准确的鉴别诊断。此外，该病例还强调了对该疾病进行全面放射学评估的重要性，以及放射科医生、肝病科医生和病理科医生多学科合作以做出准确诊断的必要性。

患者因持续腹痛，在全科医生的建议下入院进行腹腔计算机断层扫描和磁共振成像，以评估胆道树的状况（磁共振胰胆管造影）。患者以前从未接受过腹腔器械检查，因此肝脏肿瘤是一个偶然的意外发现。

磁共振成像显示了，两个肝叶都有多发性良性病变，与 von Meyenburg 复合体相似。这些病变代表多发性错构瘤，在所有扫描序列中表现不同。

研究仔细检查了不同磁共振成像序列获得的图像。在肝脏中发现了多个具有良性迹象的病灶，符合“多发性胆管错构瘤”的诊断。

医生应该能够识别这种疾病，并在肝脏病变患者的鉴别诊断中加以考虑。这将有助于避免不必要的干预，并能选择正确的治疗策略。

关键词：肝脏；错构瘤；von Meyenburg 复合体；磁共振成像；诊断成像；磁共振胰胆管造影；胆管肿瘤。

引用本文：

Balbino M, Montatore M, Fascia G, Tupputi R, Masino F, Muscatella G, Mannatrizio D, Guglielmi G. 一名老年患者偶然诊断出的多发性胆管微小错构瘤. *Digital Diagnostics*. 2024;5(2):334–341. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD623322>

收到: 14.11.2023

接受: 19.12.2023

发布日期: 02.07.2024

论证

多发性胆道错构瘤,也称为von Meyenburg复合体,相对罕见。因此,它们经常成为诊断成像期间的偶然发现。识别和准确诊断这些形成至关重要,因为它们可能模拟其他肝脏病变,如囊肿或肿瘤,导致可能不必要的侵入性程序或治疗[1-4]。

案例描述

病史

一名82岁的男子以持续超过6周的腹痛初步投诉入院。患者没有肝病的个人/家族史。进行了彻底的体检,包括体检和血液检查。然而,他们没有给出令人信服的结果,也没有做出明确的诊断。

诊断评估

患者接受了具有对比度增强的计算机断层扫描(CT),然后是磁共振成像(MRI) [5, 6]。

两个肝小叶的CT扫描意外发现多个毫米级杂乱的低密度病灶,包括囊下和肝内。

注射造影剂后,未观察到病灶增强(图1)。

随后的磁共振成像检查发现相同的病灶在不同的序列中具有不同的特征。在T2加权图像中,区域看起来均匀且高度密集(图2)。

在T1加权图像中,所有病灶均呈同质低密度。

在扩散加权图像中,病灶在低b因子(50s/mm^2)时保持高密度,在高b因子(800s/mm^2)时消失(图3)。

在具有磁共振胆管造影的T2加权图像中,由于存在许多小的高密度病灶,肝脏具有“星空”的外观,然而,与胆管的连通通常不会可视化[7] (图4)。

对比给药后的动态检查未发现动脉和静脉相的增加(图5)。

鉴别诊断

X射线数据可能是非特异性的,并且不允许将胆道错构瘤与其他病变区分开来。

多囊性肝病,多发性单纯性肝囊肿,转移瘤,微脓肿和Caroli病应被视为鉴别诊断[8]。在后一种情况下,更多异质类型的病变和与胆管的连通被可视化。

干预措施

在这种情况下,病变与任何症状或并发症没有直接关系,因此不需要手术或药物治疗。

如果von Meyenburg复合体具有某些症状或并发症,治疗可能包括手术切除受影响的肝组织或引流大囊肿[9-11]。

对于被诊断患有von Meyenburg复合体的人来说,咨询肝病专家以根据具体情况确定最佳治疗是至关重要的。

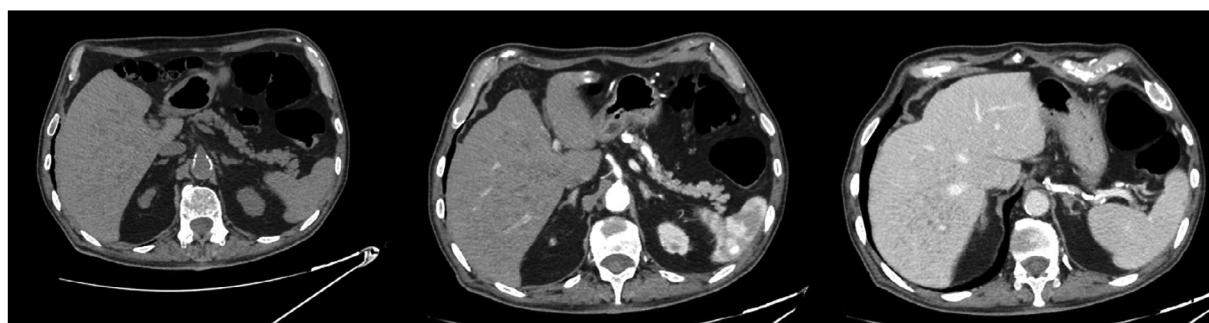


图1。 计算机断层扫描(轴向部分): 在动脉和静脉阶段没有显着的对比度增强的低密度病灶

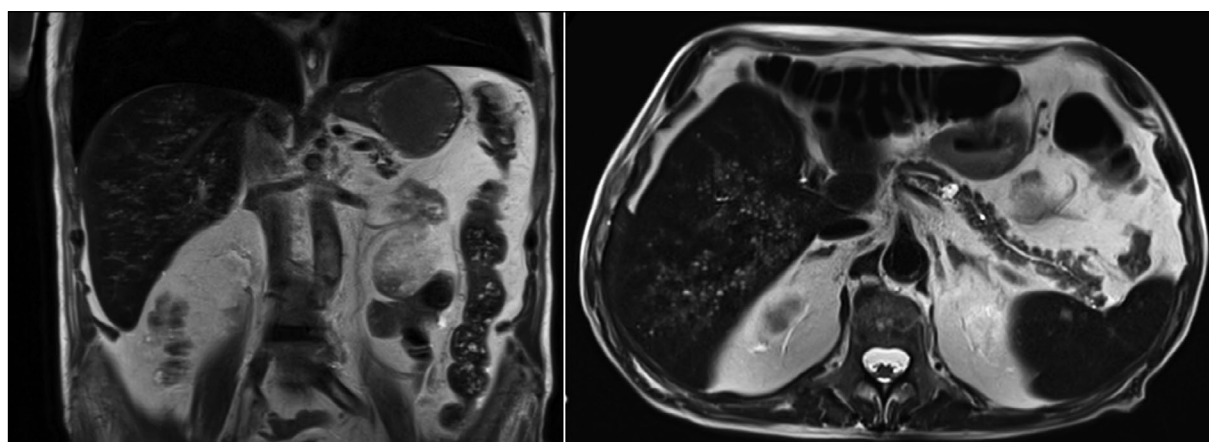


图2。 具有HASTE 2序列的磁共振成像的冠状动脉和轴向图像: 多个小高度集中病灶分散在整个肝脏。

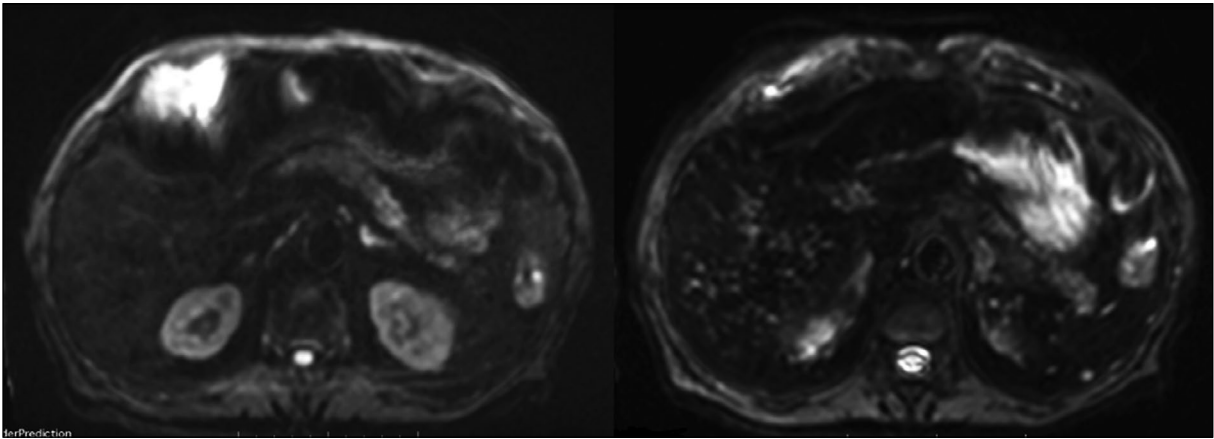


图3。 具有DWI序列的磁共振成像（轴向截面）：病灶在右侧低b因子值（50s/mm2）处保持高密度，左侧高b因子值（800s/mm2）处消失。

观察和结果

患者管理以随访和定期监测为基础，及时评估可能的变化。然而，所识别的变化不影响诊断方法的选择。

讨论情况

多发性胆道错构瘤或von Meyenburg复合体是一种罕见的良性肝脏病变，其特征是影响双叶肝叶的小而杂乱的囊性结构，通常位于包膜下区域

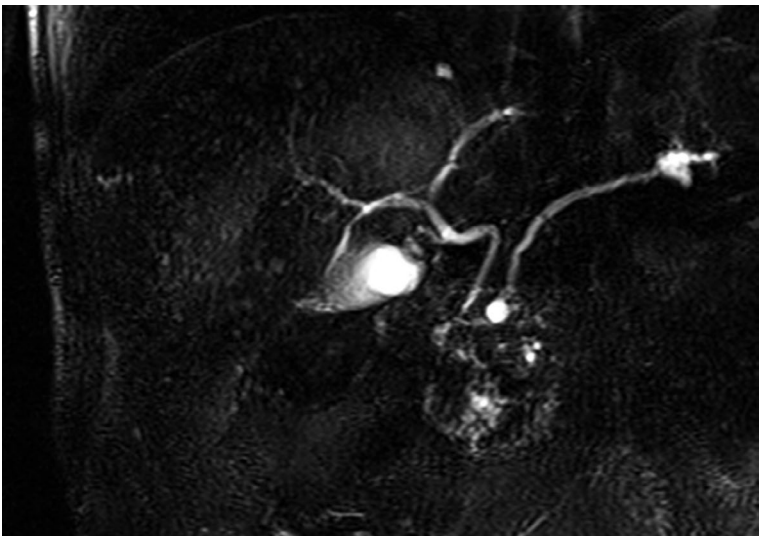


图4。 具有T2序列的磁共振胆管造影：多个小高度集中病灶，肝脏呈“星空”形式。

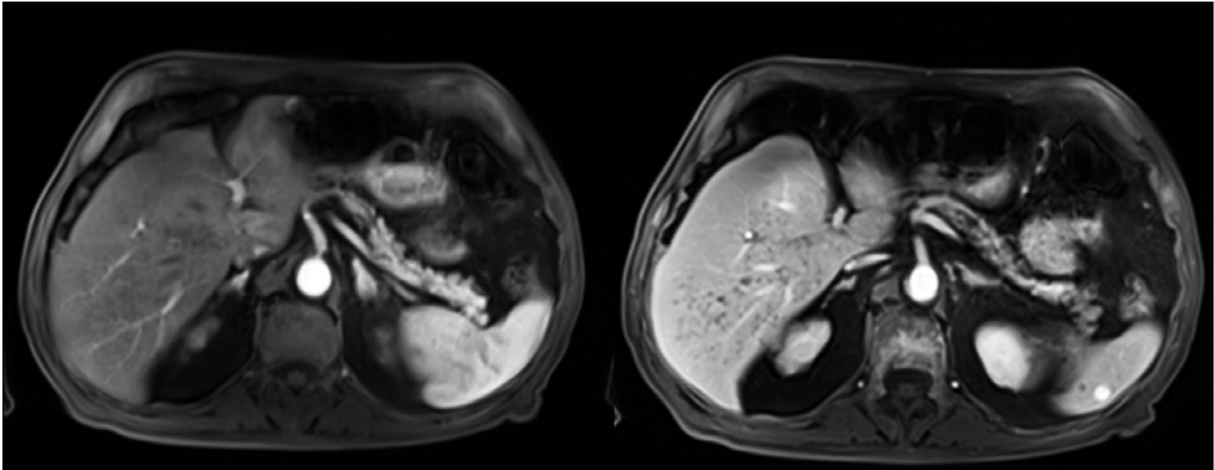


图5。 具有T1序列的磁共振成像（轴向部分）：动脉和静脉相中无明显对比增强的低密度病灶。

[12, 13]. 这些是多个小的圆形或不规则形状的形成, 成像时其大小通常为5–30毫米。

错构瘤是杂乱的胆管, 通常是在超声、计算机断层扫描和磁共振成像等影像学研究中偶然发现的, 这些检查往往是由于其他原因而进行的。尽管错构瘤可以与胆管树连通, 但它们通常不会。人们相信它们是由没有时间进化的胆管胚胎残余物产生的。

Von Meyenburg复合体被认为是良性的, 并且在大多数情况下无症状。通常, 它们与肝功能受损或临床症状无关。实验室检查数据通常是非特异性的并且在正常范围内。大多数患有此类病变的患者不需要治疗。在某些情况下, 胆道错构瘤可能与各种肝脏疾病有关, 包括多囊性肝病, Caroli病和先天性肝纤维化[14]。

如果这些疾病存在, 它们可能导致更严重的肝脏问题, 需要医疗干预。

结论

Von Meyenburg复合体是一种罕见的疾病, 通常是偶然发现的。本文描述的临床病例强调了

准确诊断的重要性, 以及将这些病变与其他肝脏疾病区分开来的困难。如果疾病无症状, 基于观察和定期监测的治疗将是适当的。然而, 医生对多发性胆道错构瘤的认识对于防止误诊和不必要的侵入性干预至关重要。未来的研究可能有助于更深入地了解这种病理及其临床后果。

ADDITIONAL INFORMATION

Funding source. This study was not supported by any external sources of funding.

Competing interests. The authors declare that they have no competing interests.

Authors' contribution. All authors made a substantial contribution to the conception of the work, acquisition, analysis, interpretation of data for the work, drafting and revising the work, final approval of the version to be published and agree to be accountable for all aspects of the work.

Consent for publication. Written consent was obtained from the patient for publication of relevant medical information and all of accompanying images within the manuscript in Digital Diagnostics Journal.

REFERENCES

1. Zheng RQ, Zhang B, Kudo M, Onda H, Inoue T. Imaging findings of biliary hamartomas. *World J Gastroenterol*. 2005;11(40):6354–6359. doi: 10.3748/wjg.v11.i40.6354
2. Gil-Bello D, Ballesteros E, Sanfeliu E, Andreu FJ. Calcification in biliary hamartomatosis. *Br J Radiol*. 2012;85(1012):e099–e101. doi: 10.1259/bjr/95019559
3. Thommesen N. Biliary hamartomas (von Meyenburg complexes) in liver needle biopsies. *Acta Pathol Microbiol Scand A*. 1978;86(2):93–99. doi: 10.1111/j.1699-0463.1978.tb02019.x
4. Aguado IC, Álvarez MH, Hernández JS, La Orden Izquierdo E. Hamartomatosis biliar en una lactante con colitis alérgica: revisión a propósito de un caso. *Rev Pediatr Aten Primaria*. 2013;15(59):e111–e114. doi: 10.4321/S1139-76322013000400014
5. Horton KM, Bluemke DA, Hruban RH, Soyer P, Fishman EK. CT and MR imaging of benign hepatic and biliary tumors. *Radiographics*. 1999;19(2):431–451. doi: 10.1148/radiographics.19.2.g99mr0443
6. Brancatelli G, Federle MP, Vilgrain V, et al. Fibropolycystic liver disease: CT and MR imaging findings. *RadioGraphics*. 2005;25(3):659–670. doi: 10.1148/rg.253045114
7. Bravo-Acosta M, Rosendo-Namías J, Martínez-Méndez D. Hamartomatosis biliar múltiple: “imagen en cielo estrellado”. *Rev Gastroenterol MEX*. 2020;86(2). doi: 10.1016/j.rgmx.2020.08.002
8. Choi BI, Yeon KM, Kim SH, et al. Caroli disease: central dot sign in CT. *Radiology*. 1990;174(1):161–163. doi: 10.1148/radiology.174.1.2294544
9. Kin HK, Jin SY. Cholangiocarcinoma arising in von Meyenburg complexes. *Korean J Hepatol*. 2011;17(2):161–164. doi: 10.3350/kjhep.2011.17.2.161
10. Song JS, Lee YJ, Kim KW, et al. Cholangiocarcinoma arising in von Meyenburg complexes: report of four cases. *Pathol Int*. 2008;58(8):503–512. doi: 10.1111/j.1440-1827.2008.02264.x
11. Xu AM, Xian ZH, Zhang SH, Chen XF. Intrahepatic cholangiocarcinoma arising in multiple bile duct hamartomas: report of two cases and review of the literature. *Eur J Gastroenterol Hepatol*. 2009;21(5):580–584. doi: 10.1097/MEG.0b013e3282fc73b1
12. Venkatanarasimha N, Thomas R, Armstrong EM, et al. Imaging features of ductal plate malformations in adults. *Clin Radiol*. 2011;66(11):1086–1093. doi: 10.1016/j.crad.2011.05.008
13. Desmet VJ. Pathogenesis of ductal plate malformation. *J Gastroenterol Hepatol*. 2004;19(S7):S356–S360. doi: 10.1111/j.1440-1746.2004.03702.x
14. Soreide K, Korner H, Havnen J, et al. Bile duct cysts in adults. *Br J Surg*. 2004;91(12):1538–1548. doi: 10.1002/bjs.4815

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ

1. Zheng R.Q., Zhang B., Kudo M., Onda H., Inoue T. Imaging findings of biliary hamartomas // *World J Gastroenterol*. 2005. Vol. 11, N 40. P. 6354–6359. doi: 10.3748/wjg.v11.i40.6354
2. Gil-Bello D., Ballesteros E., Sanfeliu E., Andreu F.J. Calcification in biliary hamartomatosis // *Br J Radiol*. 2012. Vol. 85, N 1012. P. e099–e101. doi: 10.1259/bjr/95019559
3. Thommesen N. Biliary hamartomas (von Meyenburg complexes) in liver needle biopsies // *Acta Pathol Microbiol Scand A*. 1978. Vol. 86, N 2. P. 93–99. doi: 10.1111/j.1699-0463.1978.tb02019.x
4. Aguado I.C., Álvarez M.H., Hernández J.S., La Orden Izquierdo E. Hamartomatosis biliar en una lactante con colitis alérgica: revisión a propósito de un caso // *Rev*

- Pediatr Aten Primaria. 2013. Vol. 15, N 59. P. e111–e114. doi: 10.4321/S1139-76322013000400014
5. Horton K.M., Bluemke D.A., Hruban R.H., Soyer P., Fishman E.K. CT and MR imaging of benign hepatic and biliary tumors // *Radiographics*. 1999. Vol. 19, N 2. P. 431–451. doi: 10.1148/radiographics.19.2.g99mr0443
6. Brancatelli G., Federle M.P., Vilgrain V., et al. Fibropolycystic liver disease: CT and MR imaging findings // *RadioGraphics*. 2005. Vol. 25, N 3. P. 659–670. doi: 10.1148/rg.253045114
7. Bravo-Acosta M., Rosendo-Namías J., Martínez-Méndez D. Hamartomatosis biliar múltiple: “imagen en cielo estrellado” // *Rev Gastroenterol MEX*. 2020. Vol. 86, N 2. doi: 10.1016/j.rgmx.2020.08.002
8. Choi B.I., Yeon K.M., Kim S.H., et al. Caroli disease: central dot sign in CT // *Radiology*. 1990. Vol. 174, N 1. P. 161–163. doi: 10.1148/radiology.174.1.2294544
9. Kin H.K., Jin S.Y. Cholangiocarcinoma arising in von Meyenburg complexes // *Korean J Hepatol*. 2011. Vol. 17, N 2. P. 161–164. doi: 10.3350/kjhep.2011.17.2.161

AUTHORS' INFO

* **Giuseppe Guglielmi**, MD, Professor;
ORCID: 0000-0002-4325-8330;
e-mail: giuseppe.guglielmi@unifg.it

Marina Balbino, MD;
ORCID: 0009-0009-2808-5708;
e-mail: marinabalbino93@gmail.com

Manuela Montatore, MD;
ORCID: 0009-0002-1526-5047;
e-mail: manuela.montatore@unifg.it

Giacomo Fascia, MD;
ORCID: 0000-0001-5244-5093;
e-mail: giacomo.fascia@unifg.it

Ruggiero Tupputi, MD;
e-mail: rutudott@gmail.com

Federica Masino, MD;
ORCID: 0009-0004-4289-3289;
e-mail: federicamasino@gmail.com

Gianmichele Muscatella, MD;
ORCID: 0009-0004-3535-5802;
e-mail: muscatella94@gmail.com

Domenico Mannatrizio, MD;
ORCID: 0000-0003-3365-7132;
e-mail: dr.mannatrizio@gmail.com

10. Song J.S., Lee Y.J., Kim K.W., et al. Cholangiocarcinoma arising in von Meyenburg complexes: report of four cases // *Pathol Int*. 2008. Vol. 58, N 8. P. 503–512. doi: 10.1111/j.1440-1827.2008.02264.x
11. Xu A.M., Xian Z.H., Zhang S.H., Chen X.F. Intrahepatic cholangiocarcinoma arising in multiple bile duct hamartomas: report of two cases and review of the literature // *Eur J Gastroenterol Hepatol*. 2009. Vol. 21, N 5. P. 580–584. doi: 10.1097/MEG.0b013e3282fc73b1
12. Venkatanarasimha N., Thomas R., Armstrong E.M., et al. Imaging features of ductal plate malformations in adults // *Clin Radiol*. 2011. Vol. 66, N 11. P. 1086–1093. doi: 10.1016/j.crad.2011.05.008
13. Desmet V.J. Pathogenesis of ductal plate malformation // *J Gastroenterol Hepatol*. 2004. Vol. 19, N S7. P. S356–S360. doi: 10.1111/j.1440-1746.2004.03702.x
14. Soreide K., Korner H., Havnen J., et al. Bile duct cysts in adults // *Br J Surg*. 2004. Vol. 91, N 12. P. 1538–1548. doi: 10.1002/bjs.4815

05 ABTOPAX

* **Giuseppe Guglielmi**, MD, Professor;
ORCID: 0000-0002-4325-8330;
e-mail: giuseppe.guglielmi@unifg.it

Marina Balbino, MD;
ORCID: 0009-0009-2808-5708;
e-mail: marinabalbino93@gmail.com

Manuela Montatore, MD;
ORCID: 0009-0002-1526-5047;
e-mail: manuela.montatore@unifg.it

Giacomo Fascia, MD;
ORCID: 0000-0001-5244-5093;
e-mail: giacomo.fascia@unifg.it

Ruggiero Tupputi, MD;
e-mail: rutudott@gmail.com

Federica Masino, MD;
ORCID: 0009-0004-4289-3289;
e-mail: federicamasino@gmail.com

Gianmichele Muscatella, MD;
ORCID: 0009-0004-3535-5802;
e-mail: muscatella94@gmail.com

Domenico Mannatrizio, MD;
ORCID: 0000-0003-3365-7132;
e-mail: dr.mannatrizio@gmail.com

* Corresponding author / Автор, ответственный за переписку