

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 холангиопанкреатография) 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. XX–XX.
DOI: <https://doi.org/10.17816/DD623322>

Рукопись получена: 14.11.2023

Рукопись одобрена: 19.12.2023

Опубликована online: 02.07.2024

© Эко-Вектор, 2024

Статья доступна по лицензии [CC BY-NC-ND 4.0 International](https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/)

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 following 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):XX-XX. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD623322>

Submitted: 14.11.2023

Accepted: 19.12.2023

Published online: 02.07.2024

© Eco-Vector, 2024

This article can be used under the [CC BY-NC-ND 4.0 International License](https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/)

АКТУАЛЬНОСТЬ

Множественные билиарные гамартомы, также называемые комплексами фон Мейенбурга, встречаются относительно редко, и потому они часто становятся случайной находкой при диагностической визуализации. Выявление и точная диагностика этих образований крайне важны, поскольку они могут имитировать другие поражения печени, такие как кисты или опухоли, что приводит к потенциально ненужным инвазивным процедурам или лечению [1–4].

ОПИСАНИЕ СЛУЧАЯ

АНАМНЕЗ

Мужчина, 82 года, поступил в больницу с первичными жалобами на боли в животе, сохраняющиеся более 6 недель. В личном/семейном анамнезе у пациента не было заболеваний печени. Было проведено тщательное медицинское обследование, включая физикальный осмотр и анализы крови. Однако они не дали убедительных результатов и не позволили поставить чёткий диагноз.

ДИАГНОСТИЧЕСКАЯ ОЦЕНКА

Пациенту была проведена компьютерная томография (КТ) с контрастным усилением, а затем магнитно-резонансная томография (МРТ) [5, 6].

На КТ в обеих печёночных долях были случайно выявлены множественные миллиметровые дезорганизованные гиподенсивные очаги, как субкапсулярные, так и интрапаренхимальные.

После введения контрастного вещества усиления очагов не наблюдалось (рис. 1).



Рис. 1. Компьютерная томография (аксиальный срез): гиподенсивные очаги без значительного контрастного усиления в артериальной и венозной фазах

Последующее МРТ-исследование выявило те же очаги поражения с различными характеристиками в разных последовательностях. На T2-взвешенных изображениях участки выглядят гомогенными и гиперинтенсивными (рис. 2).

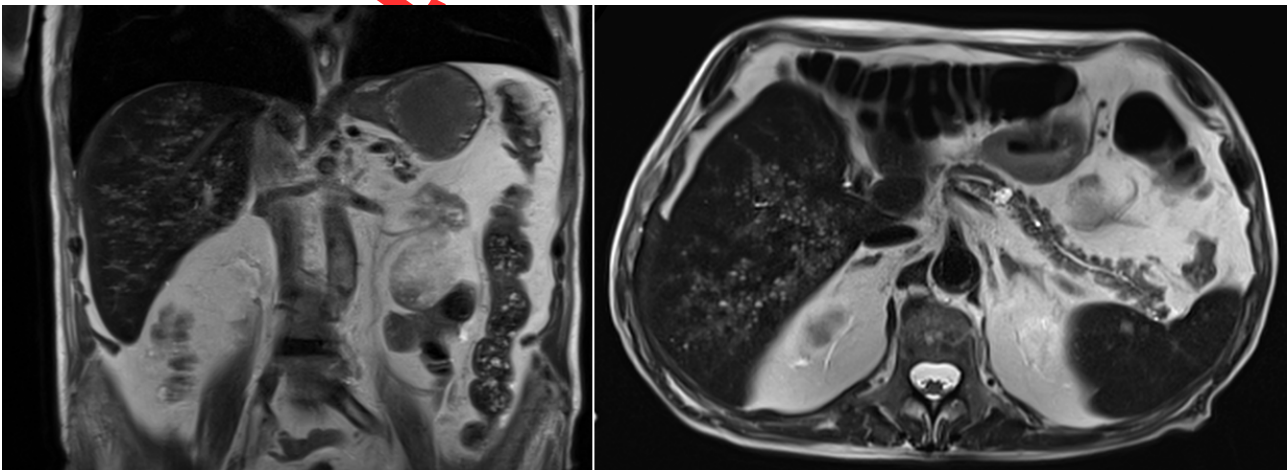


Рис. 2. Корональные и аксиальные изображения магнитно-резонансной томографии с последовательностью HASTE T2: множественные мелкие гиперинтенсивные очаги, рассеянные по всей печени.

На T1-взвешенных изображениях все очаги были гомогенно гипоинтенсивными. На диффузионно-взвешенных изображениях очаги сохраняют гиперинтенсивность при низком b-факторе (50 с/мм^2) и исчезают при высоком (800 с/мм^2) (рис. 3).

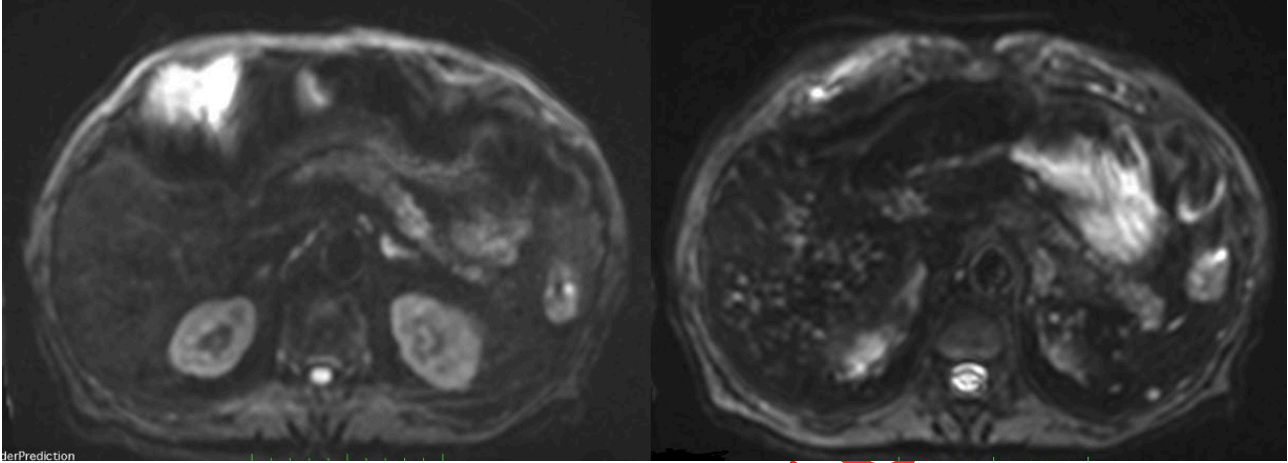


Рис. 3. Магнитно-резонансная томография (аксиальный срез) с последовательностью DWI: гиперинтенсивные очаги при низких значениях b-фактора (50 с/мм^2) справа, исчезающие при высоких значениях b-фактора (800 с/мм^2) слева.

На T2-взвешенных изображениях при МРТ-холангиографии печень имеет вид «звёздного неба» из-за наличия множества мелких гиперинтенсивных очагов, однако сообщение с желчным протоком обычно не визуализируется [7] (рис. 4).

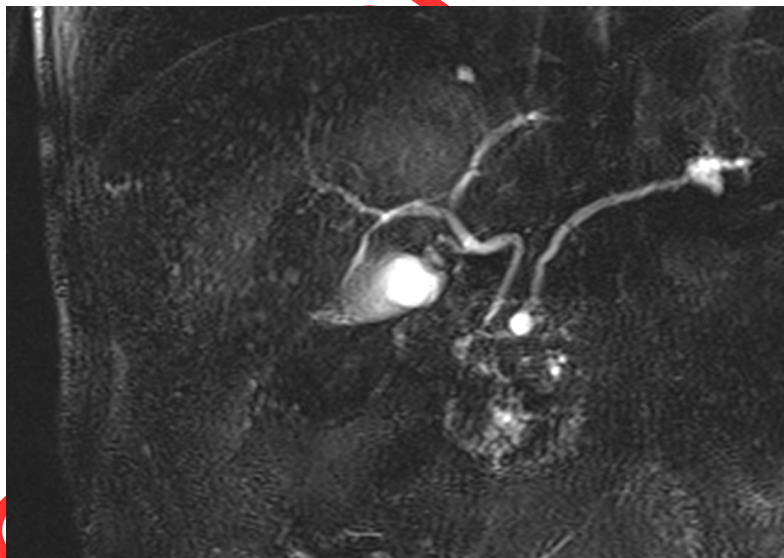


Рис. 4. Магнитно-резонансная холангиография с последовательностью T2: множественные мелкие гиперинтенсивные очаги, печень в виде «звёздного неба».

Динамическое исследование после введения контраста не выявило усиления в артериальной и венозной фазах (рис. 5).

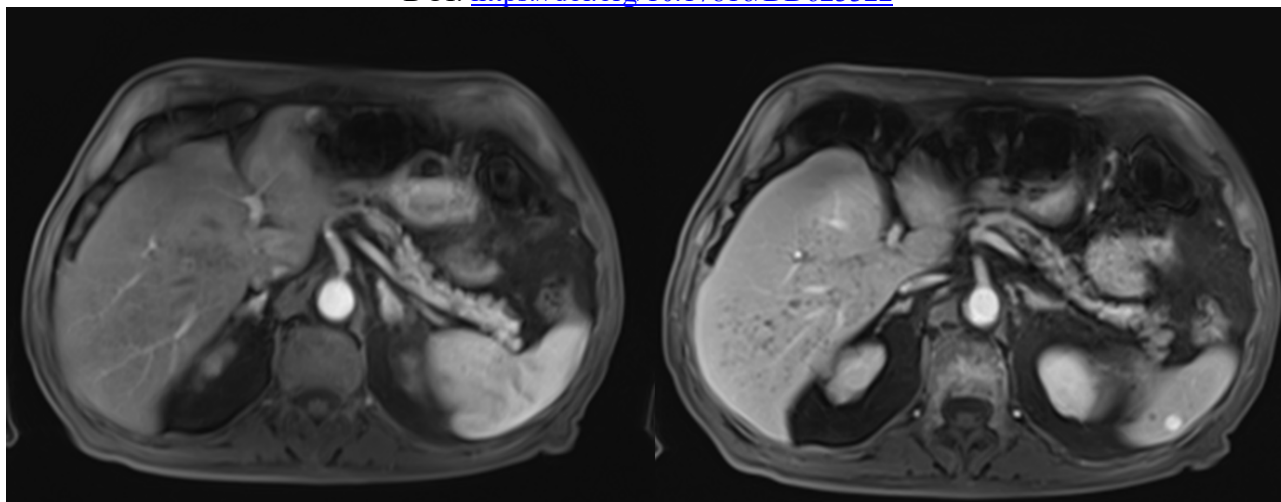


Рис. 5. Магнитно-резонансная томография (аксиальный срез) с последовательностью T1: гипоинтенсивные очаги без значительного контрастного усиления в артериальной и венозной фазах.

ДИФФЕРЕНЦИАЛЬНАЯ ДИАГНОСТИКА

Рентгенографические данные могут быть неспецифичными и не позволяют отличить билиарные гамартомы от других поражений.

В качестве дифференциального диагноза следует рассматривать поликистоз печени, множественные простые кисты печени, метастазы, микроабсцессы и болезнь Кароли [8]. В последнем случае визуализируется более гетерогенный вид поражения и сообщение с желчным протоком.

ВМЕШАТЕЛЬСТВА

В данном случае поражения не были напрямую связаны с какими-либо симптомами или осложнениями, поэтому хирургическое или фармакологическое лечение не требовалось.

Если комплексы фон Мейенбурга имеют определённую симптоматику или осложнения, лечение может включать хирургическое удаление поражённой ткани печени или дренирование крупных кист [9–11].

Лицам, у которых диагностированы комплексы фон Мейенбурга, крайне важно проконсультироваться с гепатологом, чтобы определить оптимальное лечение в зависимости от конкретного случая.

НАБЛЮДЕНИЕ И ИСХОД

Ведение пациента основывалось на наблюдении и плановом мониторинге, что позволяло своевременно оценивать возможные изменения. Однако выявленные изменения не повлияли на выбор диагностических методов.

ОБСУЖДЕНИЕ

Множественные билиарные гамартомы, или комплексы фон Мейенбурга, — редкие доброкачественные поражения печени, характеризующиеся небольшими дезорганизованными кистозными структурами, поражающими обе печёночные доли, как правило, в субкапсулярной области [12, 13]. Это множественные небольшие круглые или неправильной формы образования, размер которых при визуализации обычно составляет 5–30 мм.

Гамартомы представляют собой дезорганизованные желчные протоки и обычно обнаруживаются случайно во время визуализационных исследований, таких как ультразвуковое исследование, КТ и МРТ, которые часто проводятся по другим причинам. Хотя гамартомы могут сообщаться с билиарным деревом, обычно этого не происходит. Считается, что они возникают из эмбриональных остатков желчных протоков, которые не успели инволюционировать.

Комплексы фон Мейенбурга считаются доброкачественными и в большинстве случаев асимптоматичными. Как правило, они не связаны с нарушением функций печени или клиническими симптомами. Данные лабораторных исследований обычно неспецифичны и находятся в пределах нормы. Большинство пациентов с такими поражениями не нуждаются в лечении. В некоторых случаях билиарные гамартомы могут быть связаны с различными

заболеваниями печени, включая поликистоз печени, болезнь Кароли и врождённый печёночный фиброз [14].

Если эти заболевания присутствуют, они могут привести к более серьёзным проблемам с печенью и потребовать медицинского вмешательства.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Комплексы фон Мейенбурга — редкое заболевание, которое зачастую выявляется случайно. Описанный в данной статье клинический случай подчёркивает важность точной диагностики, а также трудности в дифференциации этих поражений от других заболеваний печени. Лечение, основанное на наблюдении и периодическом мониторинге, будет целесообразным, если заболевание протекает бессимптомно. Однако осведомлённость врача о множественных билиарных гамартомах имеет решающее значение для предотвращения ошибочного диагноза и ненужных инвазивных вмешательств. Будущие исследования могут способствовать более глубокому пониманию этой патологии и её клинических последствий.

ДОПОЛНИТЕЛЬНАЯ ИНФОРМАЦИЯ

Источник финансирования. Авторы заявляют об отсутствии внешнего финансирования при написании статьи.

Конфликт интересов. Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией настоящей статьи.

Вклад авторов. Все авторы подтверждают соответствие своего авторства международным критериям ICMJE (все авторы внесли существенный вклад в разработку концепции, проведение исследования и подготовку статьи, прочли и одобрили финальную версию перед публикацией).

Информированное согласие на публикацию. Авторы получили письменное согласие пациента на публикацию медицинских данных и фотографий в журнале Digital Diagnostics.

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.

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., Alvarez 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
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

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-Namias J, Martínez-Méndez D. Hamartomatosis biliar múltiple: “imagen en cielo estrellado”. *Rev Gastroenterol MEX*. 2020;86(2). doi: 10.1016/j.rgm.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

* 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: 0003-0002-1526-5047; 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

* Автор, ответственный за переписку / Corresponding author

Accepted for publication