

# Adenomatóza jater imituje metastatické postižení jater při FDG-PET/CT

## Liver adenomatosis mimics metastatic liver involvement on FDG-PET/CT

Bělohlávek O.<sup>1</sup>, Jarůšková M.<sup>1</sup>, Šmakal M.<sup>2</sup>

<sup>1</sup> Oddělení nukleární medicíny – PET centrum, Nemocnice Na Homolce, Praha

<sup>2</sup> NH Hospital a.s., Onkologický stacionář, Hořovice

### Souhrn

**Východiska:** Adenomatóza jater je velmi vzácné onemocnění. V literatuře se nám podařilo najít pouze dvě kazuistiky dokumentující obraz tohoto onemocnění na PET/CT s <sup>18</sup>F-fludeoxyglukózou (FDG-PET/CT). **Případ:** U 52leté pacientky s necharakteristickými bolestmi v epigastriu bez onkologické anamnézy s negativními onkomarkery a bez klinických známek generalizované neoplazie byla při sonografii zachycena četná jaterní ložiska. Doplněné MR vyšetření vyjádřilo podezření na metastatický původ ložisek a bylo indikováno FDG-PET/CT s cílem identifikovat primární tumor a posoudit rozsah onemocnění. Při celotělovém FDG-PET/CT vyšetření se v játrech zobrazila mnohočetná (> 20) výrazně hypermetabolická ložiska velikosti 3–20 mm v průměru dosahující relativní akumulace  $SUV_{BWmax} = 13$  spolu s několika ametabolickými cystami; jinde v rozsahu vyšetření ložiskově patologicky zvýšená metabolická aktivita nebyla patrná. Následně pacientka podstoupila biopsii cílenou na jedno z hypermetabolických jaterních ložisek s nálezem HNF 1A inaktivované varianty hepatocelulárního adenomu; maligní primární ani sekundární bujení nebylo prokázáno. S ohledem na histologický nález a velký počet jaterních ložisek byla jako konečná diagnóza stanovena adenomatóza jater. Pacientka zůstává v trvalém sledování. **Závěr:** Adenomatózní ložiska byla při FDG-PET/CT vyšetření výrazně hypermetabolická a touto metodou je nebylo možno odlišit od nádorových metastáz. Náš nález je v souladu s dalšími dvěma pozorováními, která se nám podařilo dohledat v literatuře.

### Klíčová slova

FDG-PET/CT – játra – adenomatóza – hepatocelulární adenom

### Summary

**Background:** Liver adenomatosis is a very rare disease. In the literature, we were able to find only two case reports documenting the appearance of this disease on PET/CT with <sup>18</sup>F-fludeoxyglucose (FDG-PET/CT). **Case:** Numerous liver foci were detected during sonography in a 52-year-old female patient with uncharacteristic pain in the epigastrium without oncological history, with negative oncomarkers and without clinical signs of generalized neoplasia. Complementary MRI examination expressed the suspicion of metastatic origin of the foci, and FDG-PET/CT was indicated in order to identify the primary tumour and assess the extent of the disease. A whole-body FDG-PET/CT examination showed multiple (> 20) markedly hypermetabolic liver foci with 3–20 mm in diameter, reaching a relative accumulation of  $SUV_{BWmax} = 13$ , together with several ametabolic cysts; elsewhere in the scope of the examination, focally pathologically increased metabolic activity was not evident. Subsequently, the patient underwent a biopsy targeted at one of the hypermetabolic liver foci with the finding of HNF 1A inactivated variant of hepatocellular adenoma; primary or secondary malignancy was not demonstrated. Considering the histological findings and the large number of liver foci, the final diagnosis of liver adenomatosis was set. The patient remains under continuous observation. **Conclusion:** Adenomatous foci were markedly hypermetabolic during FDG-PET/CT examination and could not be distinguished from tumour metastases by this method. Our finding is consistent with two other observations we were able to find in the literature.

### Key words

FDG-PET/CT – liver – adenomatosis – hepatocellular adenoma

Autoři deklarují, že v souvislosti s předmětem studie nemají žádné komerční zájmy.

The authors declare that they have no potential conflicts of interest concerning drugs, products, or services used in the study.

Redakční rada potvrzuje, že rukopis práce splnil ICMJE kritéria pro publikace zasílané do biomedicínských časopisů.

The Editorial Board declares that the manuscript met the ICMJE recommendation for biomedical papers.



doc. MUDr. Otakar Bělohlávek, CSc.

Oddělení nukleární medicíny – PET centrum

Nemocnice Na Homolce

Roentgenova 37/2

150 30 Praha 5

e-mail:

otakar.belohlavek@homolka.cz

Obdrženo/Submitted: 20. 12. 2022

Přijato/Accepted: 10. 1. 2023

doi: 10.48095/ccko2023143

## Úvod

Adenomatóza jater (AJ) je vzácné onemocnění s nejasnou etiologií. První zmínku o tomto onemocnění máme z roku 1953 [1]. Systematické zpracování prvních 13 pacientů provedli Flejou et al v roce 1985 [2]. Chiche et al provedli metaanalýzu dostupných prací z roku 1998 spolu s vlastním pozorováním čítajícím celkem 38 pacientů a shledali dva odlišné typy AJ [3]. Jeden nazvali masivním, u něj bývá hepatomegalie s deformací kontury jater způsobená přítomností nesčetných objemných adenomů o rozměrech 2–10 cm. Často v nich bývá přítomna tekutina v důsledku nekrózy nebo krvácení. Druhý typ bez hepatomegalie nazvali autoři multifokálním, v tomto případě dominují mnohočetná ložiska do 1 cm s jen malým množstvím ložisek přesahujících 4 cm. Vývoj onemocnění je variabilní, byla popsána objemová regrese po vysazení hormonální terapie (estrogen/progesteron), anebo naopak pomalá progresse v počtu i velikosti adenomů. Větší adenomy mohou působit bolestí, u adenomů > 4 cm je riziko krvácení, které může být i fatální. Riziko malignizace existuje, ale je relativně nízké [4]. Systematické sledování pacientů s AJ je

nezbytné, je vhodné provádět periodicky kontroly morfologického nálezu zobrazovacími metodami (UZ, CT či MR), není však nutné opakovat PET/CT, neboť hypermetabolické benigní adenomy nelze odlišit od maligně transformovaných, což dokládá naše kazuistika. Laboratorně je vhodné sledovat hladinu AFP s ohledem na riziko malignizace. Léčba spočívá v přerušení hormonální terapie, u operabilních adenomů > 5 cm se zvažuje resekce [5]. V případě maligní transformace nebo výrazně symptomatických vícečetných neoperovatelných adenomů přichází v úvahu transplantace jater [6].

## Případ

U 52leté pacientky s necharakteristickými bolestmi ve středním epigastriu bez klinických známek generalizované neoplazie s body mass indexem 27 bylo provedeno sonografické vyšetření jater s nálezem mnohočetných jaterních ložisek. Pacientka se v minulosti neléčila pro onkologické onemocnění, onkomarkery byly negativní. Následně provedené MR vyšetření konstatovalo kromě několika cyst heterogenní ložiskové změny parenchymu jater se suspekci na generalizaci z nejasného origa.

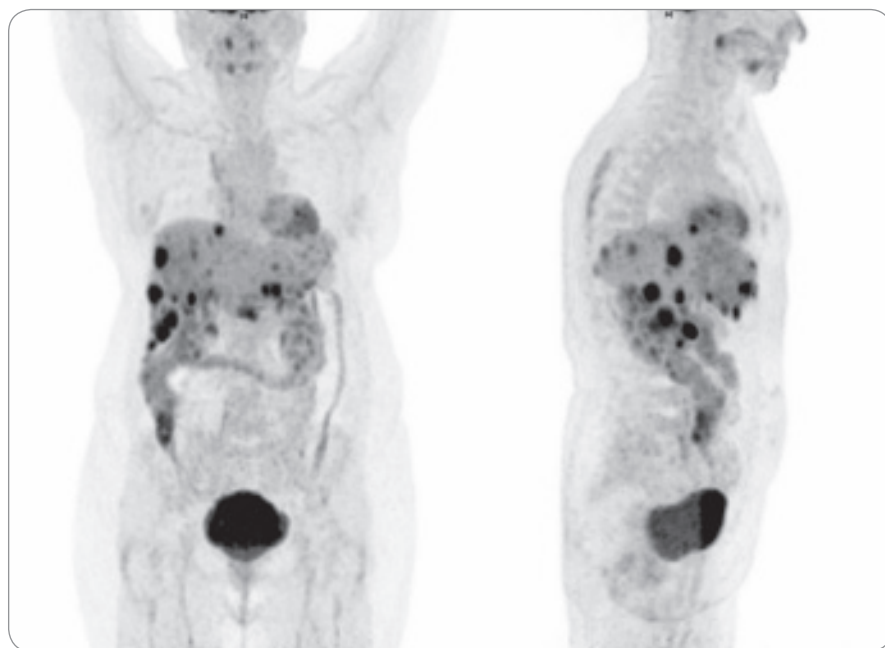
S ohledem na toto podezření bylo indikováno vyšetření PET/CT s  $^{18}\text{F}$ -fludeoxyglukózou (FDG-PET/CT) s cílem identifikovat primární tumor a posoudit rozsah eventuálního nádorového onemocnění. Při vyšetření FDG-PET/CT se v obou lalocích nezvětšených jater zobrazila mnohočetná (> 20), místy splývající výrazně hypermetabolická ložiska dosahující relativní akumulace  $\text{SUV}_{\text{BWmax}} = 13$  (obr. 1). Tato ložiska byla v CT obraze portální fáze i. v. podané jodové kontrastní látky hypodenzní (41 HU) vůči kontrastem nasycenému okolnímu parenchymu (110 HU) s velikostí 3–25 mm v průměru; některá z nich byla i izodenzní, tedy v CT obraze neseparovatelná (obr. 2). Zároveň se zobrazilo i několik ametabolických jaterních cyst (do 30 mm) s tekutinovou denzitou 10 HU. Jinde v rozsahu vyšetření (od báze lební po třísla) se nezobrazila žádná další abnormální hypermetabolická ložiska ani suspektní strukturální léze. Primární tumor ani generalizaci onemocnění mimo játra se tak nepodařilo identifikovat.

Následně byla provedena cílená biopsie jednoho výrazně metabolicky aktivního ložiska. Závěr histologického vyšetření zněl: „Morfologie a imunoprofil odpovídají hepatocelulárnímu adenomu, zřejmě variantě HNF 1A inaktivované. Maligní nádorové bujení neprokazujeme, ani sekundární, ani primární – hepatocelulární karcinom dostupnými metodami vyloučen.“

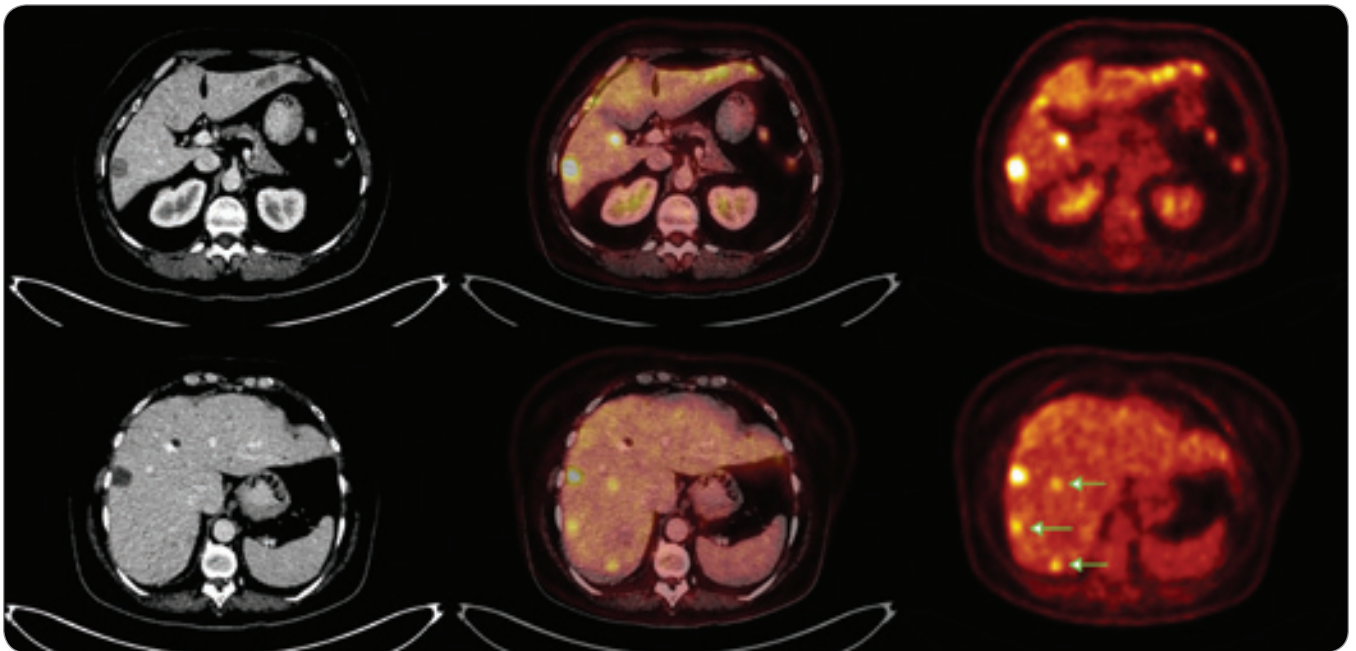
S ohledem na histologický nález a množství ložisek přesahující arbitrární hranici 10 v jinak normálním jaterním parenchymu [2] byla jako konečná diagnóza stanovena adenomatóza jater. Pacientka zůstává v trvalém sledování.

## Závěr

V naší praxi se v souladu s literaturou běžně setkáváme s metabolicky aktivními adenomy štítné žlázy, hypofýzy, nadledvin, střeva a někdy i jater. S mnohočetnou adenomatózou imitující masivní metastatické jaterní postižení jsme se však na našem pracovišti při zkušenosti se 145 000 PET vyšetření setkali poprvé. V dostupné literatuře je k dispozici dostatek prací týkajících se FDG-PET/CT u jaterních adenomů [7,8], nicméně nám se podařilo najít pouze dvě



**Obr. 1.** Na přehledné přední a boční projekci maximální intenzity PET jsou dobře patrna mnohočetná ložiska patologické akumulace FDG v játrech. Jinde je distribuce radiofarmaka fyziologická.  
FDG –  $^{18}\text{F}$ -fludeoxyglukóza



**Obr. 2.** Na tomografických vrstvách jater ve dvou transverzálních rovinách jsou v CT zobrazení (levý sloupec) patrna vícečetná hypodenzní ložiska, která vykazují patologickou akumulaci FDG v PET zobrazení (pravý sloupec). Uprostřed fúze obou modalit. Některá z FDG akumulujících ložisek nejsou v CT obraze identifikovatelná (zelené šipky).

FDG –  $^{18}\text{F}$ -fludeoxyglukóza

kazuistiky týkající se FDG-PET/CT nálezu u AJ [9,10]. Naše zjištění je s těmito dvěma pracemi plně v souladu. Byť se jedná o velmi vzácné onemocnění, při izolovaném FDG-PET/CT nálezu mnohočetných hypermetabolických jaterních ložisek je třeba na něj myslet.

#### Dedikace

Podpořeno MZ ČR – RVO (NNH, 00023884).

#### Literatura

1. Ranstrom S. Miliary hepatocellular adenomatosis. *Acta Pathol Microbiol Scand* 1953; 33(3): 225–229.

2. Flejou JF, Barge J, Menu Y et al. Liver adenomatosis: an entity distinct from liver adenoma? *Gastroenterology* 1985; 89(5): 1132–1138.

3. Chiche L, Dao T, Salamé E et al. Liver adenomatosis: reappraisal, diagnosis, and surgical management eight new cases and review of the literature. *Ann Surg* 2000; 231(1): 74–81. doi: 10.1097/0000658-200001000-00011.

4. Lammert C, Toal E, Mathur K et al. Large hepatic adenomas and hepatic adenomatosis: a multicenter study of risk factors, interventions, and complications. *Am J Gastroenterol* 2022; 117(7): 1089–1096. doi: 10.14309/ajg.00000000001743.

5. Ribeiro A, Burgart LJ, Nagorney DM et al. Management of liver adenomatosis: results with a conservative surgical approach. *Liver Transpl Surg* 1998; 4(5): 388–398. doi: 10.1002/lt.500040505.

6. Lucas E, Pareja E, Carvajal N et al. Hepatic adenomatosis: a disease with controversial treatment. *Cir Esp*

2014; 92(4): 284–286. doi: 10.1016/j.ciresp.2013.09.006.

7. Lee SY, Kingham TP, LaGratta MD et al. PET-avid hepatocellular adenomas: incidental findings associated with HNF1- $\alpha$  mutated lesions. *HPB (Oxford)* 2016; 18(1): 41–48. doi: 10.1016/j.hpb.2015.07.001.

8. Young JR, Graham RP, Venkatesh SK et al. 18F-FDG PET/CT of hepatocellular adenoma subtypes and review of literature. *Abdom Radiol (NY)* 2021; 46(6): 2604–2609. doi: 10.1007/s00261-021-02968-2.

9. Sanli Y, Bakir B, Kuyumcu S et al. Hepatic adenomatosis may mimic metastatic lesions of liver with 18F-FDG PET/CT. *Clin Nucl Med* 2012; 37(7): 697–698. doi: 10.1097/RLU.0b013e3182443ced.

10. Öz A, Koyuncu Sökmen B, İnan N et al. Incidentally detected PET-avid liver adenomatosis: MRI and 18F-FDG PET-CT findings. *Turk J Gastroenterol* 2018; 29(5): 623–624. doi: 10.5152/tjg.2018.18105.