Онкология. Журнал им. П.А. Герцена
2020, Т. 9, №6, с. 27-33
https://doi.org/10.17116/onkolog2020906127

P.A. Herzen Journal of Oncology
2020, Vol. 9, №6, pp. 27-33
https://doi.org/10.17116/onkolog2020906127

Воспалительные миофибробластические опухоли легких. Опыт лечения 11 больных

© К.В. МИНИН, П.В. КОНОНЕЦ, Б.Е. ПОЛОЦКИЙ

ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр онкологии им. Н.Н. Блохина» Минздрава России, Москва, Россия

РЕЗЮМЕ

Цель исследования. Оценка результатов хирургического лечения больных с воспалительными миофибробластическими опухолями легких.

Материал и методы. Представлен опыт лечения 11 больных с воспалительными миофибробластическими опухолями легких, находившихся в НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина в период с 2000 по 2015 г. Пациентов мужского пола было 3 (27,3%), женского — 8 (72,7%). Возраст пациентов варьировал от 2 до 49 лет, в среднем 20,1 года. Хирургическому лечению подверглись 10 больных. Производились операции следующего объема: атипичная резекция легкого (4), прецизионное удаление опухоли (2), лобэктомия (2) и пневмонэктомия (2). Из них у 3 пациентов с периферическими новообразованиями выполнены экономные резекции легких с применением торакоскопического доступа. Одному пациенту с центральной экзофитной опухолью выполнена эндоскопическая электродеструкция новообразования.

Результаты. Общая 5-летняя выживаемость составила 87%. Местный рецидив возник у 2 больных, из которых у одного через 22 мес после прецизионного удаления опухоли с использованием торакоскопического доступа, у другого была выявлена массивная рецидивная опухоль в заднем средостении через 44 мес после комбинированной пневмонэктомии слева с резекцией перикарда.

Заключение. Сложность установления истинного морфологического диагноза воспалительной миофибробластической опухоли и тенденция к инвазивному росту требуют соблюдения строгих принципов радикальности операций с адекватным объемом резекции легкого для минимизации риска рецидива.

Ключевые слова: *воспалительная миофибробластическая опухоль, опухоль легкого.*

ИНФОРМАЦИЯ ОБ АВТОРАХ:
Минин К.В. — https://orcid.org/0000-0002-0225-8254
Кононец П.В. — e-mail: pvkononets@bk.ru
Полоцкий Б.Е. — e-mail: pbepey@yandex.ru
Автор, ответственный за переписку: Минин К.В. — e-mail: doctorminin@yandex.ru

КАК ЦИТИРОВАТЬ:
Минин К.В., Кононец П.В., Полоцкий Б.Е. Воспалительные миофибробластические опухоли легких. Опыт лечения 11 больных. *Онкология. Журнал им. П.А. Герцена*. 2020;9(6):27–33. https://doi.org/10.17116/onkolog2020906127

Inflammatory myofibroblastic tumors of the lung. Experience in treating 11 patients

© K.V. MININ, P.V. KONONETS, B.E. POLOTSKY

N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia, Moscow, Russia

ABSTRACT

Objective. To assess the results of surgical treatment in patients with inflammatory myofibroblastic tumors (IMT) of the lung.

Subjects and methods. The paper presents the authors' experience in treating 11 patients with IMT of the lung at the N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology in 2000 to 2015. There were 3 (27.3%) male and 8 (72.7%) female patients. The patients' age ranged from 2 to 49 years, with a mean age of 20.1 years. Ten patients were surgically treated using the following operations: atypical lung resection (*n*=4), precision tumor removal (*n*=2), lobectomy (*n*=2), and pneumonectomy (*n*=2). Of them, 3 patients with peripheral neoplasms underwent economical thoracoscopic lung resections. One patient with a central exophytic tumor had endoscopic electrodestruction of the neoplasm.

Results. The overall 5-year survival rate was 87%. A local recurrence occurred in 2 patients, of whom one experienced it at 22 months after precision tumor resection using a thoracoscopic approach; the other was detected to have a recurrence massive tumor in the posterior mediastinum at 44 months following left pneumonectomy in combination with pericardial resection.

Conclusion. The complexity of establishing the true morphological diagnosis of an IMT and the tendency to its invasive growth require adherence to strict principles of radical surgery with an adequate volume of lung resection to minimize the risk of recurrence.

Keywords: *inflammatory myofibroblastic tumor, lung tumor.*

INFORMATION ABOUT THE AUTHORS:
Minin K.V. — https://orcid.org/0000-0002-0225-8254
Kononets P.V. — e-mail: pvkononets@bk.ru
Polotskii B.E. — e-mail: pbepey@yandex.ru
Corresponding author: Minin K.V. — e-mail: doctorminin@yandex. ru

TO CITE THIS ARTICLE:
Minin KV, Kononets PV, Polotsky BE. Inflammatory myofibroblastic tumors of the lung. Experience in treating 11 patients. *P.A. Herzen Journal of Oncology = Onkologiya. Zhurnal imeni P.A. Gertsena*. 2020;9(6):27–33. (In Russ.). https://doi.org/10.17116/onkolog2020906127

Воспалительные миофибробластические опухоли (ВМО) составляют до 1% первичных новообразований легких [1] и являются самыми распространенными первичными опухолями легких у детей [2]. Примерно 40% данных опухолей встречается у пациентов в возрасте старше 40 лет [3].

ВМО выявляются в органах брюшной полости и малого таза, гортани, молочной железе, орбите, диагностируются и внеорганные локализации (забрюшинное пространство, средостение), однако наиболее часто локализуются в легких [4].

ВМО ранее рассматривались как опухолеподобные заболевания или новообразования с доброкачественным течением, что дало им и разные названия: воспалительная псевдоопухоль, плазмоклеточная гранулема, фиброксантома, фиброзная гистиоцитома, ксантогранулема [5, 6]. Однако, как выяснилось, эти опухоли имеют склонность к местным рецидивам и отдаленному метастазированию [5, 7, 8].

В настоящее время ВМО относят к новообразованиям мезенхимальной природы с промежуточным биологическим потенциалом [9]. Некоторые авторы рассматривают эти опухоли как саркомы с низкой степенью злокачественности [10].

Этиология заболевания точно неизвестна, предполагается, что ВМО возникают в результате патологической реакции тканей на хроническое воспаление. ВМО состоит из миофибробластных опухолевых клеток и воспалительного инфильтрата из плазматических клеток, лимфоцитов и эозинофилов. Предполагается, что их биологический потенциал зависит от соотношения опухолевого и воспалительного компонента.

ВМО легких часто не имеют клинических проявлений, а в случае их наличия проявляются неспецифическими симптомами: кашлем, кровохарканьем, одышкой, гипертермией, болями в грудной клетке [4, 11].

ВМО легкого являются медленно растущей опухолью в виде одиночного узла округлой или овальной формы с достаточно четкими контурами, расположенным на периферии легкого. Иногда опухоль может иметь нечеткие контуры, а также за счет обызвествления, некроза и кист внутри опухоли представляют неоднородную структуру. Реже опухоль располагается внутрибронхиально. Описаны случаи новообразований размером от 1 до 15 см [2, 12].

При позитронно-эмиссионной томографии ВМО легких могут иметь разную степень накопления контрастного вещества: значения SUV варьируют от 2,8 до 25. Клинико-рентгенологическая картина часто не позволяет дифференцировать ВМО от рака легкого, особенно у взрослых пациентов [1, 5, 13—15].

Иммуногистохимическое (ИГХ) исследование позволяет выявить экспрессию гладкомышечного актина и десмина. Примерно в 50% случаев при ВМО различных локализаций выявляется мутация в гене *ALK*, которая является мишенью для таргетной терапии. Приводятся данные, что отдаленное метастазирование наблюдалось в основном в ALK-отрицательных опухолях. При этом наличие мутации в гене *ALK* не влияет на частоту развития местных рецидивов [16].

Методом выбора лечения ВМО легких является хирургический. Для достижения радикализма операции часто требуется выполнение анатомической резекции легкого, однако при небольших периферических опухолях некоторые авторы допускают экономную резекцию. В случае врастания в окружающие структуры оправданным считается комбинированное оперативное вмешательство. Общая 5-летняя выживаемость пациентов составляет от 74 до 89% [17—19].

При прогрессировании заболевания и в неоперабельных случаях при ALK-положительном статусе эффективным лекарственным препаратом является кризотиниб [10, 19, 20].

Материал и методы

В НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина в период с 2000 по 2015 г. проходили лечение 11 больных с ВМО. Из них пациентов мужского пола было 3 (27,3%), женского — 8 (72,7%). Возраст пациентов варьировал от 2 до 49 лет, в среднем 20,1 года.

Правосторонняя локализация изменений имелась у 5 (45,5%) больных, левосторонняя — у 6 (54,5%). Чаще (7, или 63,6%) опухоли располагалась в верхних долях легкого. Поражение нижней доли было у 3 (27,3%) больных. В 1 (9,1%) случае опухоль располагалась в главном бронхе.

В большинстве случаев размер ВМО не превышал 7 см. В 1 (9,1%) наблюдении опухоль была до 18 см в диаметре. У 4 (36,4%) пациентов диаметр опухоли варьировал от 5 до 7 см, у 4 (36,4%) — от 3 до 5 см, и у 2 (18,2%) — был <3 см. Средний размер ВМО составил 5,4±2,5 см.

В большинстве (10, или 90,9%) случаев имелась периферическая локализация опухоли, из них в 4 (40%) новообразование располагалось субплеврально, в 5 (50%) — в глубине легочной ткани, и в 1 (10%) — выявлен централизованный процесс.

В наших наблюдениях бессимптомное течение заболевания отмечено у 7 (63,6%) пациентов. Ни у одного больного с периферической формой опухоли размером <5 см не было клинических проявлений. Симптомы заболевания отмечались при размере новообразования >5 см у 3 (60%) больных. Наблюдались одышка (2 больных), сухой кашель (1), слабость (2), гипертермия (1). В остальных 2 (40%) случаях при размере опухоли >5 см процесс протекал бессимптомно. При центральной клинико-анатомической форме у 1 (100%) больного имелась одышка.

На компьютерной томографии (КТ) периферические ВМО легких имели округлую (9) или неправильную форму (1), четкие ровные (5) или неровные бугристые контуры (5). Структура опухоли была преимущественно неоднородная за счет обызвествления в центральных отделах (7) **(рис. 1)**, реже наблюдалась однородная структура (3). При этом характер контура опухоли и ее структура не зависели от размера новообразования.

В 4 наблюдениях при внутривенном контрастировании ВМО интенсивно и неравномерно накапливали контрастный препарат. Плотность опухоли варьировала от 35 до 100 ед. Н.



Рис. 1. **КТ органов грудной клетки, аксиальный срез. ВМО нижней доли правого легкого размером до 7 см с выраженной неоднородностью в структуре за счет кальцинатов (указаны стрелкой).**

Fig. 1. **Chest CT, axial section. A less than 7-cm IMT of the right lower lung lobe with marked structural heterogeneity due to calcifications (arrow).**



Рис. 2. **КТ органов грудной клетки, аксиальный срез. ВМО нижней доли правого легкого размером до 18 см.**

Fig. 2. **Chest CT, axial section. A less than 18-cm IMT of the right lower lung lobe.**

При ВМО размером >6 см в 3 случаях были признаки врастания опухоли в окружающие структуры (перикард, диафрагму, легочную ткань соседней доли). В 2 наблюдениях ВМО (центральная опухоль и периферическая с централизацией) развился ателектаз доли легкого.

При центральной форме ВМО с экзофитным характером роста бронхоскопия позволила получить материал для ИГХ-исследования и установить точный диагноз.

Трансторакальная пункционная биопсия под контролем КТ лишь у 1 пациента при помощи ИГХ-исследования позволила установить правильный диагноз.

Хирургическому лечению подверглись 10 больных с ВМО. Производились операции следующего объема: атипичная аппаратная резекция легкого (4), прецизионное удаление опухоли (2), лобэктомия (2) и пневмонэктомия (2) **(см. таблицу)**.

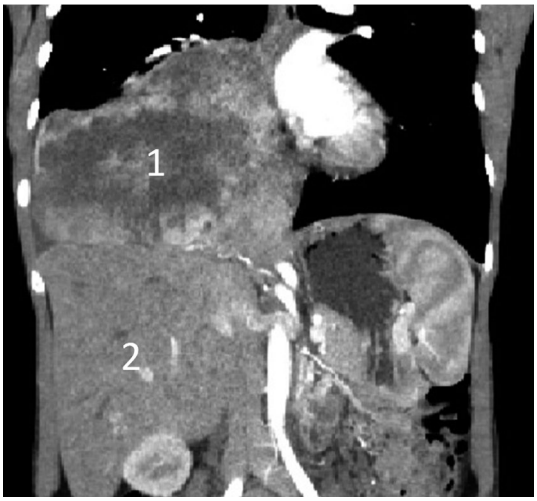


Рис. 3. **КТ органов грудной клетки, фронтальный срез. ВМО нижней доли правого легкого.**

1 — опухоль; 2 — печень.

Fig. 3. **Chest CT, frontal section. IMT of the right lower lung lobe.**

1 — tumor; 2 — liver.

У 3 пациентов с периферическими новообразованиями использовался торакоскопический доступ. Из них у 2 выполнено прецизионное удаление опухолей размером 2,3 и 3,5 см, расположенных в толще легочной паренхимы, и у 1 — аппаратная краевая резекция легкого по поводу субплевральной опухоли размером до 3 см.

Атипичная резекция легкого открытым доступом произведена 3 больным с расположением опухоли в плащевой зоне паренхимы размером от 3,0 до 6,5 см.

Лобэктомия выполнена 2 больным с ВМО при размерах 6 и 18 см. Показаниями послужили расположение опухоли в глубине легочной паренхимы и большой размер.

Пневмонэктомия осуществлена 2 больным в связи с широким врастанием в соседнюю долю легкого, у одного из которых также имелась централизация процесса.

У 3 (30%) больных операция носила комбинированный характер в связи с врастанием в окружающие структуры (2) и интимным сращением (1). Дополнительно были резецированы перикард (3), диафрагма (1) и легочная ткань соседней доли (1).

В 1 случае был использован косой тораколапаротомный доступ.

Клиническое наблюдение

Пациентка 36 лет поступила в НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина с жалобами на выраженную слабость, стойкое повышение температуры тела до 38—40°. При КТ в нижних отделах правого гемиторакса определяется массивная неоднородная по структуре опухоль до 18 см в диаметре, которая поражает большую часть нижней доли правого легкого и широко врастает в диафрагму **(рис. 2, 3)**. Выполнена трасторакальная биопсия опухоли под УЗИ-контролем. Гистологическое исследование: неэпителиальная опухоль. Принято решение о выполнении операции через косой тораколапаротомный доступ в шестом межреберье **(рис. 4)**. Произведены нижняя лобэктомия справа, широкая резекция правого ку-

Общая характеристика хирургических вмешательств при ВМО легких

Особенность операции	Число больных	
	абс.	%
Доступ:		
торакоскопический	3	30
переднебоковая торакотомия	6	60
косой тораколапаротомный	1	10
Объем операции:		
атипичная аппаратная экономная (плоскостная, клиновидная) резекция легкого	4	40
лобэктомия	2	20
пневмонэктомия	2	20
прецизионное удаление опухоли	2	20
Комбинированные операции:		
да	3	30
нет	7	70
Медиастинальная лимфодиссекция:		
да	3	30
нет	7	70
Врастание в окружающие структуры:		
да	2	20
нет	8	80
Сращение с окружающими структурами:		
да	2	20
нет	8	80
Радикальность хирургического вмешательства:		
R0	10	100
R1	0	0
R2	0	0
Время операции, мин (min—max):		
торакоскопические	63 (40—90)	
открытые	77 (30—170)	
комбинированные	210 (120—300)	
Объем кровопотери, мл (min—max):		
торакоскопические	Незначительная	
открытые	190 (50—500)	
комбинированные	1300 (800—2500)	
Послеоперационные осложнения	0	0

пола диафрагмы, пластика пластиной Gortex **(рис. 5, 6)**. Объем кровопотери составил 2500 мл. Время операции 300 мин.

При ИГХ-исследовании диагностирована воспалительная миофибробластическая опухоль, ALK-позитивная.

Использование косого тораколапаротомного доступа в ситуациях, когда опухоль легкого занимает нижний отдел гемиторакса и имеются данные о поражении диафрагмы, мы считаем наиболее адекватным и безопасным. Как видно из представленного клинического наблюдения, это позволило под контролем зрения выделить опухоль из сращений, выявить и надежно перевязать источники кровоснабжения, произвести онкологически адекватную резекцию диафрагмы с последующей ее пластикой.

Медиастинальная лимфодиссекция была выполнена 3 пациентам с ВМО. Во всех случаях послеоперационное морфологическое исследование показало отсутствие поражения средостенных лимфатических узлов.

В наших наблюдениях у 1 больного после торакоскопического прецизионного удаления ВМО размером 2,3 см возникла рецидивная опухоль размером 4,1×3,0 см с инфильтрацией легочной ткани. При срочном исследовании удаленной прецизионно опухоли выявлено, что данное образование имеет строение веретеноклеточной мезенхимальной опухоли, установить степень злокачественности которой не представляется возможным. Плановое гистологическое исследование не позволило провести дифференциальный диагноз между лейомиоматозной гамартомой и ВМО. Окончательный диагноз был поставлен с лишь помощью ИГХ-исследования.

По нашему мнению, прецизионное удаление небольших периферических новообразований легких необходимо проводить с ограничениями. В случае отсутствия убедительных данных, подтверждающих доброкачественную природу образования, при срочном исследовании опухоли целесообразно выполнять анатомическую резекцию легкого. При технической возможности следует отдавать предпочтение широкой клиновидной аппаратной резекции легкого в пределах здоровых тканей. Если мелкие новообразования расположены вблизи сегментарных сосудов и бронхов, приоритетом является сублобарная анатомическая резекция легкого.

У пациентки с центральной экзофитной опухолью размером 1,3 см была выполнена эндоскопическая электродеструкция новообразования. В связи с отказом от хирургического лечения в течение 5 лет проводились многократ-

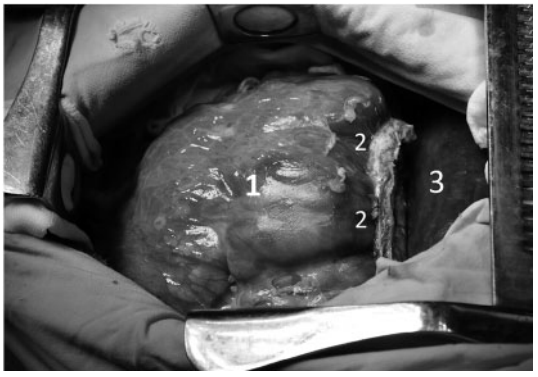


Рис. 4. **Интраоперационный вид ВМО нижней доли правого легкого после выполнения доступа и резекции диафрагмы.**

1 — опухоль; 2 — область врастания в диафрагму; 3 — печень.

Fig. 4. **Intraoperative view of IMT of the right lower lung lobe after diaphragmatic access and resection.**

1 — tumor; 2 — diaphragmatic ingrowth area; 3 — liver.

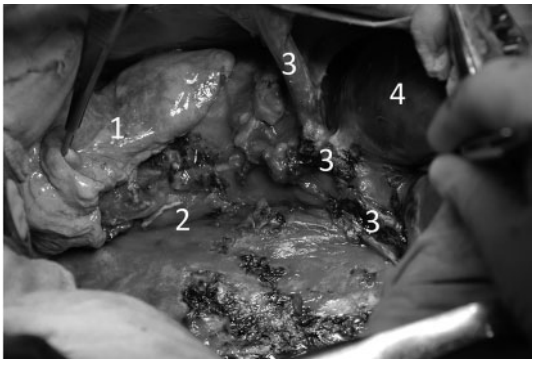


Рис. 5. **Вид после удаления опухоли.**

1 — средняя доля правого легкого; 2 — культя нижней легочной вены; 3 — резецированный участок диафрагмы; 4 — печень.

Fig. 5. **View after tumor removal.**

1 — right middle lung lobe; 2 — inferior pulmonary vein stump; 3 — resected diaphragmatic area; 4 — liver.

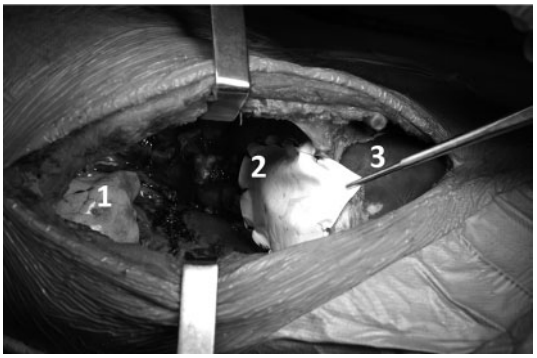


Рис. 6. **Вид после удаления опухоли и выполнения пластики диафрагмы.**

1 — средняя доля правого легкого; 2 — пластина Gortex; 3 — печень.

Fig. 6. **View after tumor removal and phrenoplasty.**

1 — right middle lung lobe; 2 — Gore-Tex plate; 3 — liver.

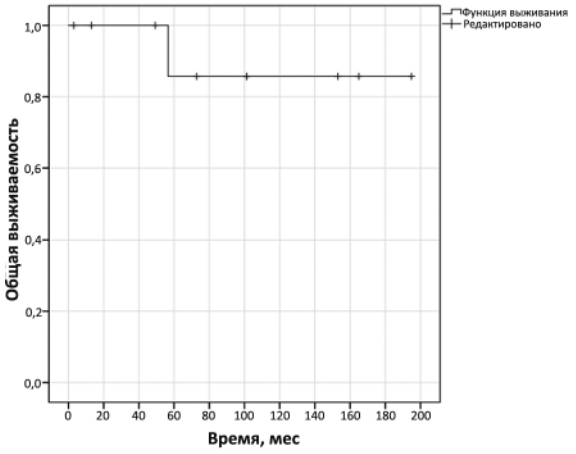


Рис. 7. **Общая выживаемость больных ВМО легких.**

Fig. 7. **Overall survival rates in patients with IMT of the lung.**

ные повторные процедуры электродеструкции по поводу продолженного роста.

Показатель общей 5-летней выживаемости составил 87% **(рис. 7)**.

Медиана времени наблюдения составила 101 мес, медиана выживаемости не достигнута.

Местный рецидив заболевания возник у 2 больных. Из них у 1 пациента рецидив выявлен через 22 мес после прецизионного удаления опухоли при использовании торакоскопического доступа. Данному больному выполнена повторная операция с применением торакотомного доступа в объеме лобэктомии. У второго больного, которому была произведена комбинированная пневмонэктомия слева с резекцией перикарда, через 44 мес была выявлена массивная рецидивная опухоль в заднем средостении с врастанием в нижнегрудной отдел пищевода, в связи с чем рекомендована симптоматическая терапия. Пациент умер через 14 мес после прогрессирования заболевания.

Морфологические и иммуногистохимические характеристики ВМО

ВМО были представлены новообразованиями округлой или овальной формы с четкими границами, на разрезе серого или бело-желтого цвета, плотной или плотноэластической консистенции, однородного или неоднородного вида, иногда с участками желтого цвета в центральных отделах **(рис. 8)**. Внутри опухоли часто имелись дистрофические изменения и кальцинаты. Опухоль окружена тонкой капсулой, иногда воспалительные инфильтраты проникали в ткань легкого. Большие опухоли прорастали жировую клетчатку, висцеральную плевру или стенку бронха, врастали в окружающие структуры.

Микроскопически ВМО состояла из веретенообразных клеток с овальными гиперхромными ядрами, распо-

ложенными пучками среди коллагеновой стромы и сосудов. В строме опухоли наблюдалась диффузная инфильтрация лимфоцитами и плазмоцитами, имелись тучные и ксантомные клетки.

Срочное морфологическое исследование во время операции было выполнено в 4 случаях, что позволило в 3 наблюдениях установить правильный диагноз.

Несмотря на это, плановое гистологическое исследование не всегда давало возможность однозначно верифицировать диагноз. У 5 больных была установлена мезенхимальная веретеноклеточная опухоль, что потребовало выполнения ИГХ-исследования. Опухолевые клетки экспрессировали виментин, десмин, гладкомышечный актин, реже циклин D1. Клетки воспалительного инфильтрата экспрессировали CD43, CD138, CD117, CD20 и CD5. Индекс пролиферативной активности Ki-67 составил <5%. В 9 случаях ВМО при помощи ИГХ- и молекулярно-генетического исследования (FISH-реакция) определены мутации гена *ALK*. Экспрессия *ALK* в опухоли при ИГХ-исследовании обнаружена у 5 (55,6%) больных, у которых FISH-исследование выявило специфическую перестройку гена *ALK,* — реаранжировка 2-й хромосомы в области локализации гена *ALK* (2p23). ALK-позитивные опухоли имели размер от 2,3 до 18,0 см в диаметре и встречались у пациентов в возрасте от 2 до 49 лет. ALK-отрицательные опухоли были размером от 3,0 до 6,5 см, их диагностировали у лиц в возрасте от 8 до 34 лет. Среди опухолей с истинным врастанием в окружающие структуры в одном случае опухоль была ALK-отрицательная, в другом — ALK-положительная. Прогрессирование заболевания установлено у пациентки 10 лет с ALK-отрицательной опухолью размером 7×6 см, интимно и широко врастающей в перикард.

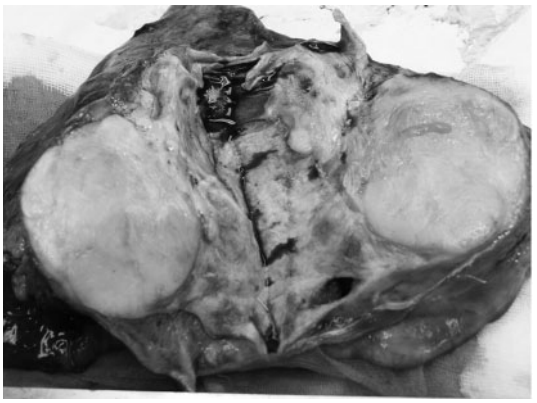


Рис. 8. **ВМО нижней доли правого легкого размером 7 см на разрезе.**

Fig. 8. Right lower lung lobe IMT measuring 7 cm on a cut.

Заключение

Воспалительные миофибробластические опухоли легких являются редкими медленно растущими опухолями. Диагноз «воспалительные миофибробластические опухоли» трудно установить до операции из-за некоторого разнообразия рентгенологических проявлений и малой информативности биопсии. Следует предъявлять особые требования к соблюдению принципов радикальности при удалении данных опухолей, что обусловлено не всегда определенным их биологическим потенциалом (существует тенденция к инвазивному росту и врастанию в окружающие структуры), а также зачастую сложностями при установлении истинного морфологического диагноза. Из-за возможности агрессивного роста необходим тот же подход к хирургическому лечению, как и при других саркомах легкого. Прецизионное удаление данных опухолей несет в себе риски местного рецидива.

Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.
The authors declare no conflicts of interest.

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

1. Sakurai H, Hasegawa T, Watanabe Si, Suzuki K, Asamura H, Tsuchiya R. Inflammatory myofibroblastic tumor of the lung. *Eur J Cardiothorac Surg.* 2004;25(2):155-159. https://doi.org/10.1016/s1010-7940(03)00678-x
2. Dhouib A, Barrazzone C, Reverdin A, Anooshiravani M, Hanquinet S. Inflammatory myofibroblastic tumor of the lung: a rare cause of atelectasis in children. *Pediatr Radiol.* 2013;43(3):381-384. https://doi.org/10.1007/s00247-012-2508-x
3. Kim TS, Han J, Kim GY, Lee KS, Kim H, Kim J. Pulmonary inflammatory pseudotumor (inflammatory myofibroblastic tumor): CT features with pathologic correlation. *J Comput Assist Tomogr.* 2005;29(5):633-639. https://doi.org/10.1097/01.rct.0000168363.60191.f8
4. Chun YS, Wang L, Nascimento AG, Moir CR, Rodeberg DA. Pediatric inflammatory myofibroblastic tumor: anaplastic lymphoma kinase (ALK) expression and prognosis. *Pediatr Blood Cancer.* 2005;45(6):796-801. https://doi.org/10.1002/pbc.20294
5. Van den Heuvel DA, Keijsers RG, van Es HW, Bootsma GP, de Bruin PC, Schramel FM, van Heesewijk JP. Invasive inflammatory myofibroblastic tumor of the lung. *J Thorac Oncol.* 2009;4(7):923-926. https://doi.org/10.1097/JTO.0b013e3181a76e28
6. Verbeke JI, Verberne AA, Den Hollander JC Robben SG. Inflammatory myofibroblastic tumour of the lung manifesting as progressive atelectasis. *Pediatr Radiol.* 1999;29(11):816-819. https://doi.org/10.1007/s002470050703
7. Ezzine-Baccari S, Bacha D, Sassi S, Abouda M, Ghrairi H, Touinsi H, Sassi S. Inflammatory myofibroblastic tumor of the lung: a benign lesion with aggressive behavior. *Gen Thorac Cardiovasc Surg.* 2012;60(8):531-533. https://doi.org/10.1007/s11748-012-0039-x
8. Takeda S, Onishi Y, Kawamura T, Maeda H. Clinical spectrum of pulmonary inflammatory myofibroblastic tumor. *Interact Cardiovasc Thorac Surg.* 2008;7(4):629-633. https://doi.org/10.1510/icvts.2007.173476
9. Dehner LP. Inflammatory myofibroblastic tumor: the continued definition of one type of so-called inflammatory pseudotumor. *Am J Surg Pathol.* 2004;28(12):1652-1654. https://doi.org/10.1097/00000478-200412000-00016

10. Fabre D, Fadel E, Singhal S, de Montpreville V, Mussot S, Mercier O, Chataigner O, Dartevelle PG. Complete resection of pulmonary inflammatory pseudotumors has excellent long-term prognosis. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2009;137(2):435-440. https://doi.org/10.1016/j.jtcvs.2008.07.009

11. Hammas N, Chbani L, Rami M, Boubbou M, Benmiloud S, Bouabdellah Y, Tizniti S, Hida M, Amarti A. A rare tumor of the lung: inflammatory myofibroblastic tumor. *Diagn Pathol.* 2012;7:83. https://doi.org/10.1186/1746-1596-7-83

12. Kakitsubata Y, Theodorou SJ, Theodorou DJ, Nabeshima K, Kakitsubata S, Friedman PJ. Myofibroblastic inflammatory tumor of the lung: CT findings with pathologic correlation. *Comput Med Imaging Graph*. 2007;31(8):607-613. https://doi.org/10.1016/j.compmedimag.2007.07.002

13. Lee HJ, Kim JS, Choi YS, Kim K, Shim YM, Han J, Kim J. Treatment of inflammatory myofibroblastic tumor of the chest: The extent of resection. *Ann Thorac Surg.* 2007;84(1):221-224. https://doi.org/10.1016/j.athoracsur.2007.03.037

14. Okiror L, Draaisma WA, Chinake C, Harrison-Phipps K. Large pulmonary inflammatory myofibroblastic tumour requiring extrapleural pneumonectomy and diaphragm resection. *Gen Thorac Cardiovasc Surg.* 2013;61(3):163-165. https://doi.org/10.1007/s11748-012-0122-3

15. Rasalkar DD, Chu WCW, To KF, Cheng FWT, Li CK. Radiological appearance of inflammatory myofibroblastic tumour. *Pediatr Blood Cancer.* 2010;54(7):1029-1017. https://doi.org/10.1002/pbc.22391

16. Coffin CM, Hornick JL, Fletcher CD. Inflammatory myofibroblastic tumor: comparison of clinicopathologic, histologic, and immunohistochemical features including ALK expression in atypical and aggressive cases. *Am J Surg Pathol.* 2007;31(4):509-520. https://doi.org/10.1097/01.pas.0000213393.57322.c7

17. Пикин О.В., Рябов А.Б., Волченко Н.Н., Беляков М.М., Колбанов К.И., Вурсол Д.А., Бармин В.В., Александров О.А. Миофибробластические опухоли легких. *Онкология. Журнал им. П.А. Герцена*. 2017;6(1):57-61.
Pikin OV, Ryabov AB, Volchenko NN, Belyakov MM, Kolbanov KI, Vursol DA, Barmin VV, Aleksandrov OA. Myofibroblastic tumors of the lung. *Onkologiya. Zhurnal imeni P.A. Gertsena P.A. Herzen Journal of Oncology.* 2017;6(1):57-61. (In Russ.).

18. Cerfolio RJ, Allen MS, Nascimento AG, Deschamps C, Trastek VF, Miller DL, Pairolero PC. Inflammatory pseudotumors of the lung. *Ann Thorac Surg.* 1999;67(4):933-936. https://doi.org/10.1016/s0003-4975(99)00155-1

19. Melloni G, Carretta A, Ciriaco P, Arrigoni G, Fieschi S, Rizzo N, Bonacina E, Augello G, Belloni PA, Zannini P. Inflammatory pseudotumor of the lung in adults. *Ann Thorac Surg.* 2005;79(2):426-432. https://doi.org/10.1016/j.athoracsur.2004.07.077

20. Al-Zaid T, Somaiah N, Lazar AJ.Targeted therapies for sarcomas: new roles for the pathologist. *Histopathology.* 2014;64(1):119-133. https://doi.org/10.1111/his.12297

Поступила 25.09.2020
Received 25.09.2020
Принята в печать 08.10.2020
Accepted 08.10.2020