

<https://doi.org/10.29188/2222-8543-2024-17-1-86-93>

Смешанная эпителиальная и стромальная опухоль в сочетании с онкоцитомой почки: редкий клинический случай и обзор литературы

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

Е.В. Гребенкин^{1,3}, А.А. Кошмелев², П.О. Моно², Е.О. Баранова², Д.Г. Пасечник¹, В.В. Федотов¹, А.А. Епишкина^{1,3}, Н.В. Швед¹, А.В. Живов²

¹ ООО «ЮНИМ»; стр. 1А, д. 11, ул. Орджоникидзе, Москва, 115419, Россия

² АО «Ильинская больница»; корп. 2, д. 2, ул. Рублевское предместье, д. Глухово, г.о. Красногорск, Московская область, 143421, Россия

³ Национальный исследовательский ядерный университет «МИФИ»; д. 31, Каширское шоссе, Москва, 115409, Россия

Контакт: Евгений Валерьевич Гребенкин, gребенкин_urolog@mail.ru

Аннотация:

Введение. Смешанные эпителиальные и стромальные опухоли (СЭИСО) почек являются редкими новообразованиями и наряду с кистозной нефромой взрослых объединяются в одну группу, именуемую смешанными эпителиальными и стромальными опухолями (классификация новообразований почек Всемирной организации здравоохранения, 2022 год). Клинически и рентгенологически они имитируют другие кистозные новообразования почек, из-за чего окончательный диагноз требует проведения патоморфологического и иммуногистохимического исследования. Несмотря на доброкачественное течение, СЭИСО могут подвергаться малигнизации; также задокументированы единичные случаи рецидивов. **Клинический случай.** Пациенту X., 65 лет, выполнена робот-ассистированная парциальная нефрэктомия слева по поводу кистозных образований левой почки с гиперваскулярным мягкотканым компонентом вдоль медиальной полуокружности одной из кист. По данным гистологического исследования была диагностирована СЭИСО левой почки в сочетании с онкоцитомой.

Выводы. В данной статье представлен, вероятно, первый опубликованный случай сочетания СЭИСО и онкоцитомы почки.

Ключевые слова: смешанная эпителиальная и стромальная опухоль почки; кистозная нефрома взрослых; онкоцинома.

Для цитирования: Гребенкин Е.В., Кошмелев А.А., Моно П.О., Баранова Е.О., Пасечник Д.Г., Федотов В.В., Епишкина А.А., Швед Н.В., Живов А.В. Смешанная эпителиальная и стромальная опухоль в сочетании с онкоцитомой почки: редкий клинический случай и обзор литературы. *Экспериментальная и клиническая урология* 2024;17(1):86-93; <https://doi.org/10.29188/2222-8543-2024-17-1-86-93>

<https://doi.org/10.29188/2222-8543-2024-17-1-86-93>

Mixed epithelial and stromal tumor in combination with oncocytoma of the kidney: a rare clinical case and review of the literature

CLINICAL STUDY

E. V. Grebenkin^{1,3}, A. A. Koshmelev², P. O. Mono², E. O. Baranova², D. G. Pasechnik¹, V. V. Fedotov¹, A. A. Epishkina^{1,3}, N. V. Shved¹, A. V. Zhivov²

¹ LLC «UNIM»; building 1A, 11, st. Ordzhonikidze, Moscow, 115419, Russia

² «ILYINSKY HOSPITAL» JSC; building 2, 2, st. Rublevskoe suburb, Glukhovo village, city district Krasnogorsk, Moscow region, 143421, Russia

³ National Research Nuclear University MEPhI; 31, Kashirskoe shosse, Moscow, 115409, Russia

Contacts: Evgeny V. Grebenkin, gребенкин_urolog@mail.ru

Summary:

Introduction. Mixed epithelial and stromal tumors (MEST) of the kidney are rare neoplasms and, along with adult cystic nephroma, are grouped together called mixed epithelial and stromal tumors (World Health Organization Classification of Tumors of the Kidney, 2022). Clinically and radiologically, they mimic other cystic renal neoplasms, thus definitive diagnosis requires histological and immunohistochemical examination. Despite the benign course, MEST can undergo malignancy; isolated cases of recurrence have also been documented.

Clinical case. Patient X, 65 years old, underwent robot-assisted left-side partial nephrectomy for cystic formations of the left kidney with a hypervascular soft tissue component along the medial semicircle of one of the cysts. According to histological examination, MEST of the left kidney in combination with oncocytoma was diagnosed.

Conclusions. This article presents probably the first published case of MEST in combination with oncocytoma of the kidney.

Key words: mixed epithelial and stromal tumor of the kidney; adult cystic nephroma; oncocytoma.

For citation: Grebenkin E. V., Koshmelev A. A., Mono P. O., Baranova E. O., Pasechnik D. G., Fedotov V. V., Epishkina A. A., Shved N. V., Zhivov A. V. Mixed epithelial and stromal tumor in combination with oncocytoma of the kidney: a rare clinical case and review of the literature. *Experimental and Clinical Urology* 2024;17(1):86-93; <https://doi.org/10.29188/2222-8543-2024-17-1-86-93>

ВВЕДЕНИЕ

Смешанная эпителиальная и стромальная опухоль (СЭИСО) является редким новообразованием почки, предоперационная диагностика которой затруднена ввиду отсутствия специфических признаков по данным клинко-инструментальных методов исследования. СЭИСО представляет собой бифазное новообразование, состоящее из неоднородного стромального солидного компонента и кист с разнообразной эпителиальной выстилкой [1]. Иммуногистохимическое исследование позволяет провести дифференциальную диагностику с другими кистозными доброкачественными и злокачественными новообразованиями, включая кистозную нефрому, кистозную форму светлоклеточного почечно-клеточного рака (ПКР), мультилокулярную кистозную опухоль почки с низким злокачественным потенциалом, ангиомиолипому (АМЛ) с эпителиальными кистами и др. [1, 2]. Несмотря на то, что большинство СЭИСО являются доброкачественными, сообщалось о редких случаях злокачественной трансформации [3-12]. Так, в исследовании Т. Vanesek и соавт. в 27 из 33 случаев опухолей семейства смешанной эпителиальной и стромальной опухоли были обнаружены признаки малигнизации: в одном случае злокачественный компонент был представлен саркомой low grade NOS в составе СЭИСО, во втором случае – веретенноклеточная саркома NOS в составе СЭИСО [12].

В данной статье представлен клинический случай СЭИСО в сочетании с онкоцитомой почки, а также обзор литературы с обсуждением инструментальных, морфологических, иммуногистохимических характеристик и гистологической дифференциальной диагностики СЭИСО почки.

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

Пациент X., 65 л., в связи с жалобами на дискомфорт в поясничной области слева обратился к урологу. Выполнено ультразвуковое исследование почек, при котором выявлено кистозное образование левой почки, в основании которой обнаружено дополнительное гипохогенное образование с неровными контурами, размерами около 15 мм, с активным кровотоком в режиме PDI. Пациенту была выполнена компьютерная томография (КТ) забрюшинного пространства (рис. 1). По данным томографии забрюшинного пространства в паренхиме нижнего сегмента левой почки определяются два кистозных образования: по латеральному контуру крупная киста, вдающаяся в паранефральную клетчатку, без связи с чашечно-лоханочной системой, размерами до 93x63x82 мм; вдоль медиальной полуокружности кисты определяется внутриспросветный гиперваскулярный мягкотканый компонент, размерами до 12x12 мм (Bosniak IV); по заднему контуру нижнего сег-

мента отмечается двухкамерная киста, с нечеткими контурами, с множественными тонкими перегородками в структуре, размером до 24x18 мм (Bosniak IIIF).

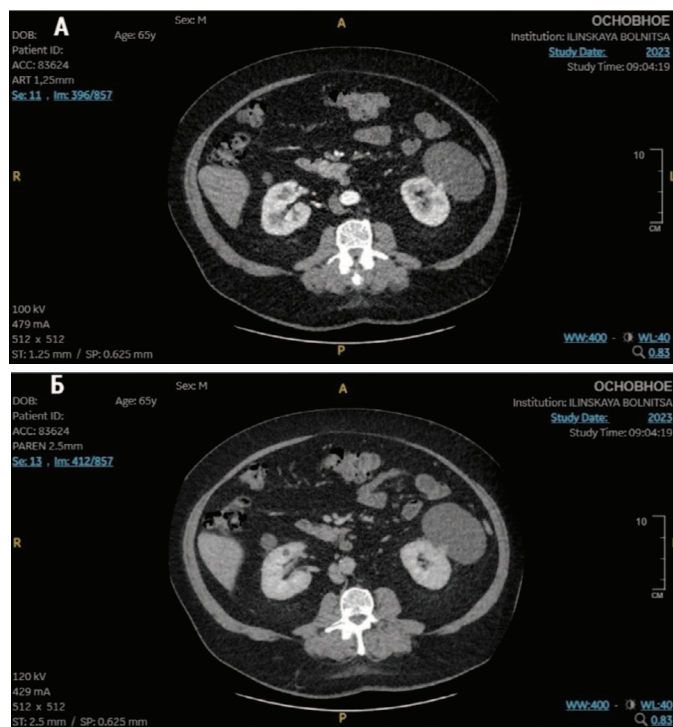


Рис. 1. Пациент X. КТ забрюшинного пространства: А – артериальная фаза; Б – секреторная фаза
Fig 1. Patient X. CT scans of the retroperitoneum. A – arterial phase. B – secretory phase

Лабораторное исследование отклонений от нормы не выявило. Пациент был госпитализирован в урологическое отделение Ильинской больницы, где ему была выполнена робот-ассистированная парциальная нефрэктомия слева, без технических трудностей. Во время хирургического вмешательства предварительно была выделена крупная киста, затем полость кисты была вскрыта, а жидкостное серозное содержимое эвакуировано. При кистоскопии в дне кисты определялось опухолевидное образование с неровной поверхностью, легко кровоточащее при контакте с инструментом (рис. 2). После иссечения стенок кисты выполнено

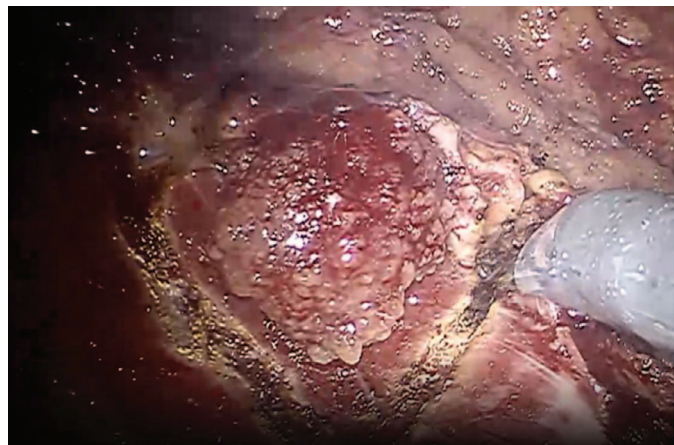


Рис. 2. Пациент X. Опухолевидное образование с неровной поверхностью в дне кисты
Fig. 2. Patient X. A tumor-like formation with an irregular surface at the bottom of the cyst

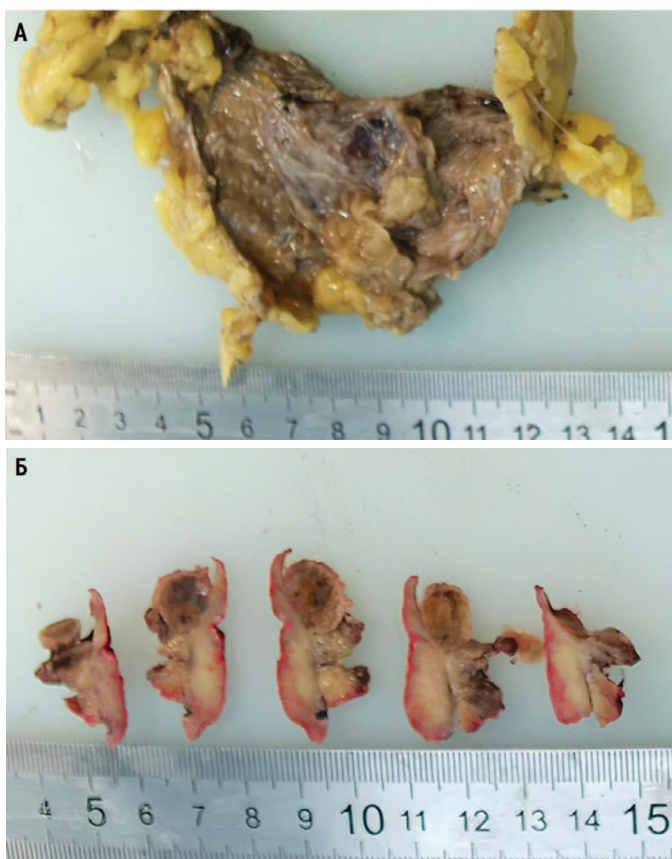


Рис. 3. Пациент X. Макропрепараты: А – стенка кисты. Б – опухоль основания кисты

Fig. 3. Patient X. Specimens: А – cyst wall. Б – tumor at the base of the cyst

иссечение образования в пределах здоровых тканей паренхимы почки. Послеоперационный период протекал без осложнений. Пациент был выписан через 48 часов после проведения вмешательства под динамическое наблюдение онкоуролога.

Операционный материал поступил в патоморфологическую лабораторию ООО «ЮНИМ». Макроскопическое исследование: материал прислан в двух флаконах. В первом флаконе с маркировкой «киста с жировой клетчаткой единым блоком» находится пластинчатая ткань коричневатого цвета размерами 80x45 мм с прилежащей жировой клетчаткой. Во втором флаконе с маркировкой «опухоль основания кисты левой почки» – фрагмент почки размерами 32x25x19 мм, коричневого цвета, на поверхности которого определяется стенка вскрытой кисты размерами 22x18x3 мм, с гладкой коричневатой поверхностью (рис. 3А). К ее основанию прилежит округлый узел размерами 14x11x10 мм с папиллярной поверхностью сероватого цвета, на разрезе инкапсулированное образование наибольшим диаметром 7 мм, солидного светло-коричневого цвета с вкраплениями серого и бурого (рис. 3Б).

Выполнена оценка гистологических препаратов, окрашенных гематоксилином и эозином (рис. 4). Материал №1 представлен фрагментами кистозного образования почки, эпителиальная выстилка которого представлена преимущественно одним слоем низких ку-

Таблица 1. Результат иммуногистохимического исследования

Table 1. The result of immunohistochemical examination

Параметры Parameters	Кистозная опухоль Cystic tumor	Прилежащая солидная опухоль Adjacent solid tumor
PAX8 (клон polyclonal, Cell Marque) PAX8 (clone polyclonal, Cell Marque)	+ (диффузная ядерная) + (diffuse nuclear)	+ (диффузная ядерная) + (diffuse nuclear)
CK7 (клон OV-TL 12/30, Cell Marque) CK7 (clone OV-TL 12/30, Cell Marque)	+ (диффузная мембранно-цитоплазматическая) + (diffuse membranous and cytoplasmic)	+ (мембранно-цитоплазматическая в единичных клетках) + (membranous and cytoplasmic in single cells)
CD117 (клон EP10, BIOCARE) CD117 (clone EP10, BIOCARE)	+ (диффузная мембранная) + (diffuse membranous)	+ (очаговая мембранная в строме) + (focal membranous in the stroma)
Estrogen receptor (клон 6F11, Leica) Estrogen receptor (clone 6F11, Leica)	+ (очаговая ядерная) + (focal nuclear)	+ (очаговая ядерная) + (focal nuclear)
Progesteron receptor (клон 1E2, Roshe) Progesteron receptor (clone 1E2, Roshe)	+ (очаговая ядерная) + (focal nuclear)	+ (очаговая ядерная) + (focal nuclear)
WT1 (клон WT49, Leica) WT1 (clone WT49, Leica)	отсутствует absent	отсутствует absent
CaIX (клон TH22, Leica Biosystems) CaIX (clone TH22, Leica Biosystems)	отсутствует absent	отсутствует absent
Calretinin (клон CAL6, Leica) Calretinin (clone CAL6, Leica)	отсутствует absent	+ (очаговая ядерная и цитоплазматическая в строме) + (focal nuclear and cytoplasmic in the stroma)
Vimentin (клон V9, Leica) Vimentin (clone V9, Leica)	+ (диффузная цитоплазматическая в строме) + (diffuse cytoplasmic in the stroma)	+ (диффузная цитоплазматическая в строме) + (diffuse cytoplasmic in the stroma)
AMACR/P504S (клон 13H4, Cell Marque) AMACR/P504S (clone 13H4, Cell Marque)	отсутствует absent	отсутствует absent

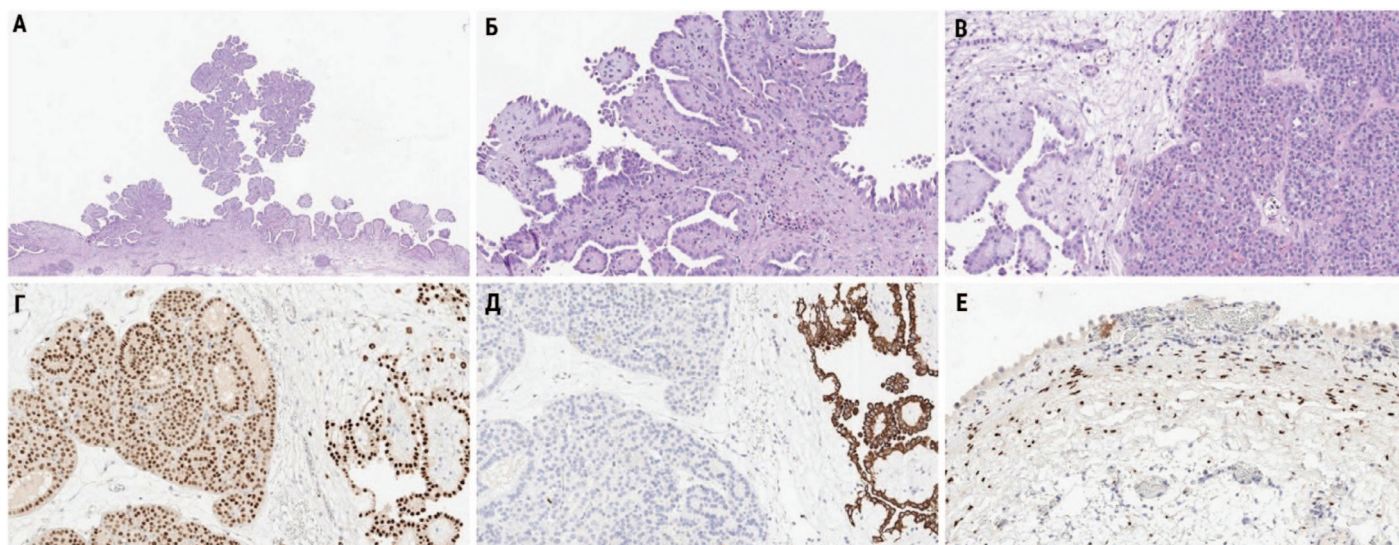


Рис. 4. Пациент X. Результат гистологического исследования: А, Б – стенка кисты с сосочковыми структурами, окраска Н&Е (А – x100, Б – x200); В – опухоль, прилегающая к кистозной структуре, окраска Н&Е, x200; Г – диффузное ядерное окрашивание PAX8 в обеих опухолях, x200; Д – диффузное цитоплазматическое окрашивание CK7 эпителиальной выстилки кистозного образования, x200; Е – очаговое ядерное окрашивание ER элементов стромы кистозного образования, x200
Fig. 4. Patient X. The result of histological examination: А, Б – cyst wall with papillary structures, H&E stain (А – x100, Б – x200); В – tumor adjacent to the cystic structure, H&E stain, x200; Г – diffuse nuclear staining of PAX8 in both tumors, x200; Д – diffuse cytoplasmic staining of CK7 of epithelial lining of the cyst, x200; Е – focal nuclear staining of ER of cyst stroma elements, x200

бических клеток с обильной эозинофильной цитоплазмой; встречается очаговая многорядность. Ядра среднего размера с различными ядрышками на увеличении x400. Материал №2 – паренхима почки с ростом кистозного образования, стенка которого выстлана преимущественно кубическими клетками со слабо эозинофильной цитоплазмой и со слабо полиморфными ядрами с заметным ядрышком на увеличении x400. Очагово формируются ветвящиеся сосочковые и листовидные структуры с выраженной миксоидизацией стромы, выстланные более крупными кубическими и вытянутыми клетками со схожими цитологическими характеристиками (рис. 4А, Б). В стенку кисты вдается опухоль, имеющая четкую границу с паренхимой почки, без инвазии в прилежащую жировую ткань, представленная гнездами, солидными пластами и разнокалиберными кистозными структурами, лежащими в резко отечной строме (рис. 4В). Опухолевые клетки относительно мономорфные, гиперхромные, с заметными ядрышками на увеличении x400, с эозинофильной цитоплазмой, единичными митозами. Хирургический край свободен от опухоли.

С целью уточнения гистологического типа опухоли было выполнено иммуногистохимическое исследование (рис. 4Г-Е), (табл. 1).

Таким образом, морфологическая картина и иммунофенотип соответствуют сочетанию смешанной эпителиальной и стромальной опухоли и онкоцитомы почки. Хирургический край свободен от опухоли.

ОБСУЖДЕНИЕ

СЭИСО наряду с кистозной нефромой взрослых, впервые описанные М. Michal и М. Syrucek в 1998 г.

[13], являются редкими почечными новообразованиями, составляющими менее 1% всех опухолей почек [14], и объединены в один тип опухолей, именуемых смешанными эпителиальными и стромальными опухолями в классификации новообразований почек Всемирной организации здравоохранения (ВОЗ) 2022 года [1].

Данные опухоли встречаются преимущественно у женщин [14, 15]. Так, в крупном исследовании А. Calìò и соавт. из 53 случаев СЭИСО соотношение женщин и мужчин составило 6,6:1 [15].

Гистогенез данных опухолей точно не известен, однако считается, что остатки мюллеровых протоков могут подвергаться неопластической трансформации [16]. Одна из патогенетических теорий заключается в том, что перидуктальная мезенхима плода вокруг эпителиального компонента в мозговом веществе почки становится чувствительной к стимуляции женскими гормонами и подвергается пролиферации [17]. Ввиду того, что данные опухоли часто встречаются у женщин с гормональным дисбалансом или получавших гормональную терапию и у мужчин с длительным воздействием половых стероидов, предполагается, что может существовать связь между стероидными гормонами и возникновением смешанных эпителиальных и стромальных опухолей [1, 14, 17-19]. В то же время, ряд исследований опровергают данную связь [20, 21].

Кистозная нефрома взрослых и СЭИСО характеризуются сходными клиническими, морфологическими и иммунофенотипическими признаками, а также демонстрируют сходные профили экспрессии матричной РНК (мРНК), которые отличаются от других опухолей почки [16, 22]. Отмечено также

отсутствие аномалии хромосом 8, 11 и 17 в отличие от врожденной клеточной мезобластной нефромы [23]. В исследовании T. Vanesek и соавт. во всех 29 случаях СЭИСО и кистозной нефромы взрослых не была обнаружена мутация *DICER1*, подтверждающая мнение о том, что они не связаны с кистозной нефромой у детей [12], значительная часть которых несет мутации этого гена [24, 25].

Чаще всего данные опухоли являются случайной находкой [1, 26], однако, их рост может характеризоваться типичными клиническими проявлениями для всех типов опухолей почки, такими как боли в поясничной области, боли в животе, макро- и микрогематурия и пр. [14, 17, 21, 27].

По данным инструментальных методов визуализации СЭИСО представлена хорошо очерченным многополостным кистозным образованием с тонкими или толстыми перегородками, с наличием солидного компонента и обычно характеризуется как киста категории III или IV по Bosniak [1, 20]. Также сообщалось о солидной структуре опухоли [28]. Двусторонние и множественные случаи встречаются редко [29]. В ряде работ отмечено, что солидные участки опухоли, состоящие из стромальных веретенообразных клеток, по данным магнитно-резонансной томографии характеризовались как T2-гипоинтенсивные, а участки с отеками изменениями – как T2-гиперинтенсивные; по данным компьютерной томографии солидные участки опухоли демонстрировали гиператтенуацию [28, 30, 31]. В то же время, подобная картина может наблюдаться и в случае ПКР и АМЛ, в том числе АМЛ с эпителиальными кистами [32]. В целом, инструментальные методы визуализации не способны достоверно дифференцировать СЭИСО с другими кистозными образованиями почки, в том числе, с кистозным ПКР [33].

Макроскопически СЭИСО характеризуются сочетанием солидных и кистозных участков строения в различных пропорциях [15, 17], при этом кистозные нефромы взрослых являются полностью кистозными, в то время как СЭИСО содержат переменный солидный компонент [16, 19, 22, 34]. Кисты разного размера и формы, с гладкой и блестящей оболочкой, содержат серозную жидкость [16]. Размер СЭИСО сильно варьирует со средним показателем от 4 до 7 см по данным различных источников [15, 16, 20, 21, 26, 35, 36]. Сообщается, что некоторые опухоли могут вызывать компрессию чашечно-лоханочной системы [21], но истинная жировая инфильтрация синуса встречается редко [27]. Также описан случай СЭИСО с поражением нижней полой вены без гистологических признаков злокачественности [37].

Микроскопически СЭИСО по определению представляют собой двухфазные новообразования, состоящие из эпителиальных кист, выстланных доброкачественным эпителием (обычно почечно-клеточного типа) и пролиферацией цитологически доброкаче-

ственных веретеновидных клеток [1]. Строма варьирует от гипоклеточной до гиперклеточной и представлена фиброзными, лейомиоподобными участками; часто присутствует строма яичникового типа, которая может подвергаться вторичной лютеинизации. Вокруг эпителиального компонента может наблюдаться конденсация стромы, а также возникать миксоидные изменения [13, 15-17, 19, 22, 35, 38-40]. Эпителий, выстилающий кистозные полости и тубулярные пространства, представлен одним слоем плоских, кубических, шиповидных, столбчатых клеток с эозинофильной, амфотильной или вакуолизированной цитоплазмой, светлыми клетками или реснитчатыми клетками; эпителий может иметь мюллеровы черты. В редких случаях эпителий может быть пилорическим, кишечным, уротелиальным и цервикальным [1, 22, 40-42]. Атипия обычно минимальна как в эпителиальном, так и в стромальном компоненте. Гладкие мышцы, липоматозная метаплазия, митозы, некрозы и кровоизлияния являются редкими находками. Сообщалось о небольших кистах, содержащих эозинофильный материал, напоминающий фолликулы щитовидной железы, со сложными ветвящимися канальцами, участками филоидного строения и папиллярными структурами [15, 16]. При этом высокое соотношение стромы к эпителию, выраженная строма яичникового типа, меньший размер кист с наличием филоидных структур и лютеинизацией стромы характерны для СЭИСО, в то время как крупные кисты с тонкими перегородками и низким стромально-эпителиальным соотношением характерны для кистозных нефром взрослых [16].

Иммуногистохимически в стромальном компоненте СЭИСО отмечается экспрессия маркеров гладкой мускулатуры (SMA и desmin), рецепторов к эстрогену (ER) и к прогестерону (PR), в строме яичникового типа – экспрессия CD10, в то время как экспрессия меланоцитарных маркеров (HMB-45 и MART1) отсутствует [13, 15-17, 19, 22, 35, 38, 39]. Также отмечено, что в строме яичникового типа отмечается экспрессия ингибина, кальретинина и Forkhead Box L2 (FOXL2) [43]. Для эпителиального компонента характерна экспрессия цитокератинов, Paired Box 2 (PAX2) и Paired Box 8 (PAX8), а также вариабельно ER и PR [26, 35, 44]. В 57% случаев была обнаружена коэкспрессия GATA Binding Protein 3 (GATA3) и PAX8 [15].

В то время как в большинстве случаев данные опухоли ведут себя доброкачественно, сообщалось об очень редких злокачественных новообразованиях, чаще в виде сарком, возникающих из стромы опухоли [3-12]. Сообщается также о двух случаях рецидива [4], связанных с первичной неполной хирургической резекцией в одном случае и со злокачественной трансформацией в другом.

Помимо кистозной нефромы взрослых, СЭИСО следует дифференцировать от других доброкачествен-

ных и злокачественных новообразований, таких как кистозная форма светлоклеточного ПКР, саркоматоидный ПКР, мультилокулярная кистозная опухоль почки с низким злокачественным потенциалом, папиллярный ПКР с выраженной веретенклеточной стромой, АМЛ с эпителиальной кистой, метанефральная аденофиброма и др. [1, 2]. Так, в отличие от ПКР, эпителиальный компонент СЭИСО редко образует клеточные скопления, а стромальный компонент характеризуется отсутствием клеточного плеоморфизма, атипии, некроза и митотических фигур, которые типичны для саркоматоидного ПКР. Для ПКР, равно как и для мультилокулярной кистозной опухоли почки с низким злокачественным потенциалом, характерна экспрессия карбоангидразы IX (CAIX) и CD10 [45], в то время как в эпителиальном компоненте СЭИСО экспрессия данных маркеров, как правило, отсутствует.

Папиллярный ПКР с выраженной веретенклеточной стромой демонстрирует экспрессию α -метилаццил-КоА-рацемазы (AMACR) в эпителиальном компоненте и отсутствие экспрессии ER и PR, в отличие от СЭИСО [46].

СЭИСО и АМЛ с эпителиальными кистами морфологически схожи, и в обеих опухолях клетки стромы иммунореактивны в отношении SMA, desmin, ER, PR и CD10. Однако, для АМЛ характерна экспрессия меланоцитарных маркеров HMB45 и Melan A, которая отсутствует в СЭИСО [47].

Метанефральная аденофиброма – редкая двухфазная опухоль почки – чаще встречается у детей и молодых людей и обычно не имеет кистозного компонента, а стромальный компонент чаще иммунореактивен в отношении Wilms' tumor 1 (WT1) и CD34 и иммунонегативен в отношении SMA и desmin [48].

Крайне редко эндометриоз с поражением почки может имитировать почечные новообразования, в том числе СЭИСО [49]. Микроскопическая картина почечного эндометриоза аналогична той, которая наблюдается в других органах, и представлена неактивными или пролиферирующими железами эндометрия, окруженными стромой эндометрия, которая отличается от

стромы при СЭИСО. При эндометриозе могут определяться участки кистозных изменений и скопления пеннистых и гемосидериновых макрофагов, указывающих на старые кровоизлияния. Иногда могут быть выражены гладкие мышцы или фиброзная реакция. Иммуногистохимически при эндометриозе наблюдается положительная реакция с CK7, ER, PR, PAX8, Cancer Antigen 125 (CA125) и vimentin в железистых эпителиальных клетках, а в строме – реакция с vimentin, ER, PR и CD10.

Как правило, оперативное лечение заключается в выполнении радикальной нефрэктомии или резекции почки. При этом, нефронсберегающая тактика является предпочтительной в случаях, когда это технически возможно, поскольку почти все кистозные новообразования имеют хороший прогноз [2]. Однако, принимая во внимание, что зачастую СЭИСО вовлекают мозговое вещество почки и почечную лоханку, а также могут иметь крупный размер, органосохраняющая операция не всегда возможна [20]. В нашем случае, обе опухоли располагались в нижнем сегменте левой почки субкортикально, что позволило выполнить их резекцию с сохранением почки.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Представлен уникальный случай сочетания СЭИСО и онкоцитомы почки. Анализ доступной отечественной и зарубежной литературы позволяет нам констатировать, что представленный нами случай, вероятно, является первым опубликованным случаем сочетания СЭИСО и онкоцитомы почки. Редкая встречаемость СЭИСО и схожесть ее с другими кистозными новообразованиями почки обуславливает трудности интерпретации результатов инструментальных методов визуализации, что может привести к гипердиагностике злокачественных новообразований и, соответственно, более агрессивной хирургической тактике. ■

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. WHO Classification of Tumours Editorial Board. Urinary and male genital tumours. Lyon (France): International Agency for Research on Cancer 2022. [Electronic resource]. URL: <https://publications.iarc.fr/610>.
2. Tinguria M, Chorneyko K. Mixed epithelial and stromal tumor: a rare renal neoplasm-case report with clinicopathologic features and review of the literature. *Case Rep Pathol* 2023;2023:3528377. <https://doi.org/10.1155/2023/3528377>.
3. Svec A, Hes O, Michal M, Zachoval R. Malignant mixed epithelial and stromal tumor of the kidney. *Virchows Archiv* 2001;439(5):700–2. <https://doi.org/10.1007/s004280100518>.
4. Yap Y.-S, Coleman M, Olver I. Aggressive mixed epithelial-stromal tumour of the kidney treated with chemotherapy and radiotherapy. *Lancet Oncol* 2004;5(12):747–9. [https://doi.org/10.1016/S1470-2045\(04\)01651-1](https://doi.org/10.1016/S1470-2045(04)01651-1).
5. Sukov WR, Chevillat JC, Lager DJ, Lewin JR, Sebo TJ, Lewin M. Malignant mixed epithelial and stromal tumor of the kidney with rhabdoid features: report of a case including immunohistochemical, molecular genetic studies and comparison to morphologically similar renal tumors. *Hum Pathol* 2007;38(9):1432–7. <https://doi.org/10.1016/j.humpath.2007.03.022>.
6. Jung SJ, Shen SS, Tran T, Jun SY, Truong L, Ayala AG, Ro JY. Mixed epithelial and stromal tumor of kidney with malignant transformation: report of two cases and review of literature. *Hum Pathol* 2008;39(3):463–8. <https://doi.org/10.1016/j.humpath.2007.08.008>.
7. Kuroda N, Sakaida N, Kinoshita H., Matsuda T, Hes O, Michal M, et al. Carcinosar-

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- coma arising in mixed epithelial and stromal tumor of the kidney. *APMIS* 2008;116(11):1013–5. <https://doi.org/10.1111/j.1600-0463.2008.01063.x>.
8. Suzuki T, Hiragata S, Hosaka K., Oyama T, Kuroda N, Hes O, Michal M. Malignant mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: Report of the first male case. *Int J Urol* 2013;20(4):448–50. <https://doi.org/10.1111/j.1442-2042.2012.03155.x>.
 9. Mudaliar KM, Mehta V, Gupta GN, Picken MM. Expanding the morphologic spectrum of adult biphasic renal tumors - Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney with focal papillary renal cell carcinoma: Case report and review of the literature. *Int J Surg Pathol* 2014;22(3):266–71. <https://doi.org/10.1177/1066896913488823>.
 10. Zou L, Zhang X, Xiang H. Malignant mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: the second male case and review of literature. *Int J Clin Exp Pathol* 2014;7(5):2658–63.
 11. Menéndez CL, Rodríguez VD, Fernández-Pello S, Venta Menéndez V, Poch Arenas M, Corrales B, et al. A new case of malignant mixed epithelial and stromal tumor of the kidney with rhabdomyosarcomatous transformation. *Anal Quant Cytopathol Histopathol* 2012;34(6):331–4.
 12. Vanecek T, Pivovarcikova K, Pitra T, Peckova K, Rotterova P, Daum O, et al. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: mutation analysis of the DICER1 gene in 29 Cases. *Appl Immunohistochem Mol Morphol* 2017;25(2):117–121. <https://doi.org/10.1097/PAI.0000000000000262>.
 13. Michal M, Syrucek M. Benign mixed epithelial and stromal tumor of the kidney. *Pathol Res Pract* 1998;194:445–8. [https://doi.org/10.1016/s0344-0338\(98\)80038-1](https://doi.org/10.1016/s0344-0338(98)80038-1).
 14. Wang CJ, Lin YW, Xiang H, Fang DB, Jiang P, Shen BH. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: Report of eight cases and literature review. *World J Surg Oncol* 2013;11:207. <https://doi.org/10.1186/1477-7819-11-207>.
 15. Caliò A, Eble JN, Grignon DJ, Delahunt B. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: A clinicopathologic study of 53 cases. *Am J Surg Pathol* 2016;40:1538–49. <https://doi.org/10.1097/pas.0000000000000733>.
 16. Turbiner J, Amin MB, Humphrey PA, Srigley JR, De Leval L, Radhakrishnan A, Oliva E. Cystic nephroma and mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: a detailed clinicopathologic analysis of 34 cases and proposal for renal epithelial and stromal tumor (REST) as a unifying term. *Am J Surg Pathol* 2007;31(4):489–500. <https://doi.org/10.1097/PAS.0b013e31802bdd56>.
 17. Adsay NV, Eble JN, Srigley JR, Jones EC, Grignon DJ. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney. *Am J Surg Pathol* 2000;24(7):958–70. <https://doi.org/10.1097/0000478-200007000-00007>.
 18. Mohanty SK, Parwani AV. Mixed epithelial and stromal tumors of the kidney—an overview. *Arch Pathol Lab Med* 2009;133:1483–6. <https://doi.org/10.5858/133.9.1483>.
 19. Antic T, Perry KT, Harrison K, Zaytsev P, Pins M, Campbell SC, Picken MM. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney and cystic nephroma share overlapping features: reappraisal of 15 lesions. *Arch Pathol Lab Med* 2006;130(1):80–5. <https://doi.org/10.5858/2006-130-80-MEAStO>.
 20. Tsai SH, Wang JH, Lai YC, Chang YH, Chung HJ, Chang LS. Clinical-radiologic correlation of mixed epithelial and stromal tumor of the kidneys: Cases analysis. *J Chin Med Assoc* 2016;79(10):554–8. <https://doi.org/10.1016/j.jcma.2016.02.012>.
 21. Demir H, Sahin Z, Ozman O, Demirebilek M, Ozden SB, Gurses I, et al. Mixed epithelial and stromal tumor family of kidney (adult cystic nephroma, mixed epithelial and stromal tumor): retrospective clinicopathological evaluation. *Turk Patoloji Derg* 2022;38(3):251–60. <https://doi.org/10.5146/tjpath.2022.01575>.
 22. Zhou M, Kort E, Hoekstra P, Westphal M, Magi-Galluzzi C, Sercia L, et al. Adult cystic nephroma and mixed epithelial and stromal tumor of the kidney are the same disease entity: molecular and histologic evidence. *Am J Surg Pathol* 2009;33(1):72–80. <https://doi.org/10.1097/PAS.0b013e3181852105>.
 23. Pierson CR, Schober MS, Wallis T, Sarkar FH, Sorensen PH, Eble JN, et al. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney lacks the genetic alterations of cellular congenital mesoblastic nephroma. *Hum Pathol* 2001;32(5):513–20. <https://doi.org/10.1053/hupa.2001.24323>.
 24. Cajaiba M., Khanna G., Smith E., Gellert L, Chi YY, Mullen EA, et al. Pediatric cystic nephromas: distinctive features and frequent DICER1 mutations. *Hum Pathol* 2016;48:81–7. <https://doi.org/10.1016/j.humpath.2015.08.022>.
 25. Doros L, Rossi C, Yang J, Field A, Williams GM, Messinger Y, et al. DICER1 mutations in childhood cystic nephroma and its relationship to DICER1-renal sarcoma. *Mod Pathol* 2014;27(9):1267–80. <https://doi.org/10.1038/modpathol.2013.242>.
 26. Karasavvidou F, Mitrakas L, Tzika S, Zachos I, Anagnostou A, Tzortzis V. Mixed epithelial and stromal tumor-adult cystic nephroma of the kidney: a case report with immunohistochemical analysis. *J Surg Case Rep* 2022;2022(9):rjac387. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjac387>.
 27. Magnelli LL, Metra B, Falzarano SM, Grajo JR. A MEST up classification? Review of the re-classification of mixed epithelial and stromal tumor and adult cystic nephroma for the abdominal radiologist. *Abdom Radiol* 2021;46:696–702. <https://doi.org/10.1007/s00261-020-02687-0>.
 28. Chu LC, Hruban RH, Horton KM, Fishman EK. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 2010;30(6):1541–51. <https://doi.org/10.1148/rg.306105503>.
 29. Minoda R, Takagi T, Toda N, Itagaki H, Kondo T, Ishida H, et al. Bilateral and multiple mixed epithelial and stromal tumors of the kidney: A case report. *Mol Clin Oncol* 2017;7:1005–7. <https://doi.org/10.3892/mco.2017.1444>.
 30. Freire M, Remer EM. Clinical and radiologic features of cystic renal masses. *AJR Am J Roentgenol* 2009;192(5):1367–72. <https://doi.org/10.2214/AJR.08.1468>.
 31. Tatsuya S, Hirota A, Yuki A, Akiko T, Masahiro H, Shigeo O, et al. Radiologic features of mixed epithelial and stromal tumors of the kidney: Hyperattenuating on unenhanced computed tomography and T2-hypointensity on magnetic resonance imaging. *Radiol Case Rep* 2021;16(4):858–62. <https://doi.org/10.1016/j.radcr.2021.01.048>.
 32. Jinzaki M, Silverman SG, Akita H, Nagashima Y, Mikami S, Oya M. Renal angiomyolipoma: a radiological classification and update on recent developments in diagnosis and management. *Abdom Imaging* 2014;39(3):588–604. <https://doi.org/10.1007/s00261-014-0083-3>.
 33. Sun B, Abern M, Garzon S, Setty S. Cystic nephroma/mixed epithelial stromal tumor. *Int J Surg Pathol* 2015;23(3):238–42. <https://doi.org/10.1177/1066896914563391>.
 34. Jevremovic D, Lager DJ, Lewin M. Cystic nephroma (multilocular cyst) and mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: a spectrum of the same entity? *Ann Diagn Pathol* 2006;10(2):77–82. <https://doi.org/10.1016/j.anndiagpath.2005.07.011>.
 35. Michal M, Hes O, Bisceglia M, Simpson RH, Spagnolo DV, Parma A, et al. Mixed epithelial and stromal tumors of the kidney. A report of 22 cases. *Virchows Arch* 2004;445(4):359–67. <https://doi.org/10.1007/s00428-004-1060-y>.
 36. Lane BR, Campbell SC, Remer EM, Fergany AF, Williams SB, Novick AC, et al. Adult cystic nephroma and mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: clinical, radiographic, and pathologic characteristics. *Urology* 2008;71(6):1142–8. <https://doi.org/10.1016/j.urology.2007.11.106>.
 37. Picken MM, Bova D, Pins MR, Quek ML. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney with extension into inferior vena cava: Case report and discussion of adult biphasic cystic renal lesions and the significance of vascular involvement. *Case Rep Pathol* 2018;2018:8234295. <https://doi.org/10.1155/2018/8234295>.
 38. Antic T, Huang M, Picken MM. Evolving concepts of cystic renal lesions: The controversy over cystic nephroma and mixed epithelial and stromal tumor of the kidney. *Pathology Case Reviews* 2006;11(4):173–7. <https://doi.org/10.1097/01.pcr.0000227462.98588.47>.
 39. Montironi R, Mazzucchelli R, Lopez-Beltran A, Martignoni G, Cheng L, Montorsi F, et al. Cystic nephroma and mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: opposite ends of the spectrum of the same entity? *Eur Urol* 2008;54(6):1237–46. <https://doi.org/10.1016/j.eururo.2007.10.040>.
 40. Caliò A, Eble JN, Grignon DJ, Delahunt B. Cystic Nephroma in Adults: A Clinicopathologic Study of 46 Cases. *Am J Surg Pathol* 2016;40(12):1591–600. <https://doi.org/10.1097/PAS.0000000000000732>.
 41. Chu PG, Lau SK, Weiss LM, Jiang Z. Intestinal type of mucinous borderline tumor arising from mixed epithelial and stromal tumor of kidney. *Virchows Archiv* 2009;455(4):389–94. <https://doi.org/10.1007/s00428-009-0831-x>.
 42. Yang Y, Ondrej H, Zhang L, Lu J, Lu M, Wang H, Zheng J, Michal M. Mixed epithelial and stromal tumor of the kidney with cervical and intestinal differentiation. *Virchows Archiv* 2005;447(3):669–71. <https://doi.org/10.1007/s00428-005-1269-4>.
 43. Westerhoff M, Tretiakova M, Hart J, Gwin K, Liu X, Zhou M, et al. The expression of FOXL2 in pancreatic, hepatobiliary, and renal tumors with ovarian-type stroma. *Hum Pathol* 2014;45:1010–4. <https://doi.org/10.1016/j.humpath.2013.12.015>.
 44. Karafin M, Parwani AV, Netto GJ, Illei PB, Epstein JI, Ladanyi M, Argani P. Diffuse expression of PAX2 and PAX8 in the cystic epithelium of mixed epithelial stromal tumor, angiomyolipoma with epithelial cysts, and primary renal synovial sarcoma: evidence supporting renal tubular differentiation. *Am J Surg Pathol* 2011;35(9):1264–73. <https://doi.org/10.1097/PAS.0b013e31822539a1>.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

45. Williamson SR, Halat S, Eble JN, Grignon DJ, Lopez-Beltran A, Montironi R, et al. Multilocular cystic renal cell carcinoma: similarities and differences in immunoprofile compared with clear cell renal cell carcinoma. *Am J Surg Pathol* 2012;36(10):1425-33. <https://doi.org/10.1097/PAS.0b013e31825b37f0>.
46. Rogala J, Kojima F, Alaghebandan R, Agaimy A, Martinek P, Ondic O, et al. Papillary renal cell carcinoma with prominent spindle cell stroma - tumor mimicking mixed epithelial and stromal tumor of the kidney: Clinicopathologic, morphologic, immunohistochemical and molecular genetic analysis of 6 cases. *Ann Diagn Pathol* 2020;44:151441. <https://doi.org/10.1016/j.anndiagnpath.2019.151441>.
47. Wei J, Li Y, Wen Y, Li L, Zhang R. Renal angiomyolipoma with epithelial cysts: a rare entity and review of literature. *Int J Clin Exp Pathol* 2015;8(9):11760-5.
48. Chami R, Yin M, Marrano P, Teerapakpinyo C, Shuangshoti S, Thorner PS. BRAF mutations in pediatric metanephric tumors. *Hum Pathol* 2015;46(8):1153-61. <https://doi.org/10.1016/j.humpath.2015.03.019>.
49. Yang Y, Zhao X, Huang Y. Renal endometriosis mimicking cystic renal tumor: Case report and literature review. *Front Med (Lausanne)* 2021;8:684474. <https://doi.org/10.3389/fmed.2021.684474>.

Сведения об авторах:

Гребенкин Е.В. – к.м.н., врач-патологоанатом ООО «ЮНИМ», старший преподаватель кафедры фундаментальной медицины Национального исследовательского ядерного университета МИФИ; Москва, Россия; РИНЦ Author ID 1017673, <https://orcid.org/0000-0002-4990-6722>

Кошмелев А.А. – к.м.н., врач-уролог, АО «Ильинская больница»; Москва, Россия; РИНЦ Author ID 636474, <https://orcid.org/0000-0002-7736-6030>

Моно П.О. – д.м.н., врач-уролог, заведующий отделением урологии, АО «Ильинская больница»; Москва, Россия; <https://orcid.org/0009-0002-7074-5115>

Баранова Е.О. – врач-уролог, АО «Ильинская больница»; Москва, Россия; <https://orcid.org/0000-0002-3524-801X>

Пасечник Д.Г. – к.м.н., доцент, врач-патологоанатом ООО «ЮНИМ»; Москва, Россия; РИНЦ Author ID 637030, <https://orcid.org/0009-0009-6216-2818>

Федотов В.В. – врач-патологоанатом ООО «ЮНИМ»; Москва, Россия; РИНЦ Author ID 779399, <https://orcid.org/0000-0002-9447-3292>

Епишкина А.А. – к.м.н., врач-патологоанатом ООО «ЮНИМ», доцент кафедры фундаментальной медицины Национального исследовательского ядерного университета МИФИ; Москва, Россия; РИНЦ Author ID 892316, <https://orcid.org/0000-0002-7824-7949>

Швед Н.В. – к.м.н., врач-патологоанатом, главный врач ООО «ЮНИМ»; Москва, Россия; РИНЦ Author ID 690228

Живов А.В. – к.м.н., доцент, врач-уролог, врач-онкоуролог, главный врач АО «Ильинская больница»; Москва, Россия; РИНЦ Author ID 1021560, <https://orcid.org/0009-0009-6916-6328>

Вклад авторов:

Гребенкин Е.В. – написание текста рукописи; патоморфологическая диагностика, обзор публикаций по теме статьи, 20%
 Кошмелев А.А. – хирургическое лечение пациента, написание текста рукописи, 15%
 Моно П.О. – хирургическое лечение пациента, научное редактирование текста рукописи, 15%
 Баранова Е.О. – хирургическое лечение пациента, 10%
 Пасечник Д.Г. – патоморфологическая диагностика, 10%
 Федотов В.В. – патоморфологическая диагностика, 10%
 Епишкина А.А. – обзор публикаций по теме статьи, 10%
 Швед Н.В. – научное редактирование текста рукописи, 5%
 Живов А.В. – научное редактирование текста рукописи, 5%

Конфликт интересов: Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование: Исследование проведено без финансовой поддержки.

Статья поступила: 29.11.23

Результаты рецензирования: 27.12.23

Исправления получены: 22.01.24

Принята к публикации: 03.02.24

Information about authors:

Grebenkin E.V. – PhD, Pathologist, LLC «UNIM», senior Lecturer at the Department of Fundamental Medicine National Research Nuclear University MEPhI; Moscow, Russia; RSCI Author ID 1017673, <https://orcid.org/0000-0002-4990-6722>

Koshmelev A.A. – PhD, urologist, «Ilyinsky hospital» JSC; Moscow, Russia; RSCI Author ID 636474, <https://orcid.org/0000-0002-7736-6030>

Monod P.O. – Dr. Sci., urologist, head of the urology department, «Ilyinsky hospital» JSC; Moscow, Russia; <https://orcid.org/0009-0002-7074-5115>

Baranova E.O. – M.D., urologist, «Ilyinsky hospital» JSC; Moscow, Russia; <https://orcid.org/0000-0002-3524-801X>

Pasechnik D.G. – PhD, M.D., assistant professor; pathologist, LLC «UNIM»; Moscow, Russia; RSCI Author ID 637030, <https://orcid.org/0009-0009-6216-2818>

Fedotov V.V. – M.D., pathologist, LLC «UNIM»; Moscow, Russia; RSCI Author ID 779399, <https://orcid.org/0000-0002-9447-3292>

Epishkina A.A. – PhD, pathologist, LLC «UNIM», assistant professor at the Department of Fundamental Medicine National Research Nuclear University MEPhI; Moscow, Russia; RSCI Author ID 892316, <https://orcid.org/0000-0002-7824-7949>

Shved N.V. – PhD, pathologist, head physician LLC «UNIM»; Moscow, Russia; RSCI Author ID 690228

Zhivov A.V. – PhD, Associate Professor, urologist, oncurologist, head physician «Ilyinsky hospital» JSC; Moscow, Russia; RSCI Author ID 1021560, <https://orcid.org/0009-0009-6916-6328>

Authors' contributions:

Grebenkin E.V. – writing the text of the manuscript; pathomorphological diagnosis, review of publications on the topic of the article, 20%
 Koshmelev A.A. – surgical treatment of the patient, writing the text of the manuscript, 15%
 Mono P.O. – surgical treatment of the patient, scientific editing of the manuscript text, 15%
 Baranova E.O. – surgical treatment of the patient, 10%
 Pasechnik D.G. – pathomorphological diagnosis, 10%
 Fedotov V.V. – pathomorphological diagnosis, 10%
 Epishkina A.A. – review of publications on the topic of the article, 10%
 Shved N.V. – scientific editing of the manuscript text, 5%
 Zhivov A.V. – scientific editing of the manuscript text, 5%

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Financing. The article was published without financial support.

Received: 29.11.23

Peer review: 27.12.23

Corrections received: 22.01.24

Accepted for publication: 03.02.24