

Bal oldali teljes tüdőeltávolítás intrapulmonalisán elhelyezkedő Castleman betegség miatt

Farkas Attila dr.¹ ■ Tolvaj Balázs dr.² ■ Andrási Katinka dr.¹
Kecskés László dr.¹ ■ Furák József dr.³

¹Markusovszky Egyetemi Oktatókórház, Mellkassebészeti Osztály, Szombathely

²Markusovszky Egyetemi Oktatókórház, Patológiai Osztály, Szombathely

³Szegedi Tudományegyetem, Általános Orvostudományi Kar, Sebészeti Klinika, Szeged

A Castleman-betegség egy ritka lymphoproliferatív betegség, mely a leggyakrabban a gátörégi nyirokcsomókat érinti. Az intrapulmonalisán elhelyezkedő forma ritkán fordul elő, az angol nyelvű irodalomban 14 eset ismert. A betegség tünetei nem specifikusak, és a diagnózis felállítása gyakran nehézségekbe ütközik. A kezelés fő célja az épbén történő sebészi reszekció elérése, mely potenciális esélyt nyújt a recidívamentes túlélésre. 15 éves tünetmentes lánybetegünket ernyőszűrően bal oldali mellkasi terimével emelték ki. A transthoracalis szövettani mintavétel megerősítette a Castleman-betegség diagnózisát. A centrálisan elhelyezkedő tumormassza érintette a tüdőkapu képleteit, ezért műtét során bal oldali teljes tüdőeltávolítás vált szükségessé a daganatmentes reszekciós szél eléréséhez. A beteg a műtétet követő 7 éves utánkövetési periódus során mindvégig recidívamentes volt. A Castleman-betegség jól kezelhető komplett sebészi reszekcióval, a betegség kiterjedése miatt azonban időnként indokolt lehet a kiterjesztett, radikális tüdőeltávolítás a tumormentes reszekciós szél eléréséhez.

Orv Hetil. 2023; 164(37): 1476–1483.

Kulcsszavak: Castleman-betegség, angiofollicularis nyirokcsomó-hyperplasia, unicentrikus, unilocularis, intrapulmonalis tumor

Left pneumonectomy for intrapulmonary unicentric Castleman disease

Castleman disease is an uncommon lymphoproliferative disorder, located most commonly in the mediastinal lymph nodes. The intrapulmonary presentation is extremely rare, with 14 published cases in the English literature. The clinical presentation of the disorder is not specific and the diagnosis is often challenging. The main goal is to achieve an R0 surgical resection which gives the potential chance for a recurrence-free survival. We present the case of a symptomless, 15-year-old female patient with left-sided tumor mass. Transthoracal invasive tissue biopsy confirmed Castleman disease. The central mass involved the main structures in the left hilus and therefore left pneumonectomy was necessary to reach the complete, tumor-free resection margins. The patient had no local or distant relapse during the 7-year follow-up. Although Castleman disease treated by complete surgical resection provides excellent results, radical and extended lung resection is sometimes inevitable to reach tumor-free margins.

Keywords: Castleman disease, angiofollicular lymph node hyperplasia, unicentric, unilocular, intrapulmonary

Farkas A, Tolvaj B, Andrási K, Kecskés L, Furák J. [Left pneumonectomy for intrapulmonary unicentric Castleman disease]. Orv Hetil. 2023; 164(37): 1476–1483.

(Beérkezett: 2023. június 1.; elfogadva: 2023. június 20.)

Rövidítések

CD = (cluster of differentiation) differenciációs klaszter; CT = (computed tomography) komputertomográfia; FDG = fluoro-dezoxi-glükóz; HIV = humán immundeficiencia-vírus; MRI =

(magnetic resonance imaging) mágnesesrezonancia-képalkotás; PET = pozitronemissziós tomográfia; POEMS = (polyneuropathy, organomegaly, endocrinopathy, monoclonal gammopathy, skin changes) polyneuropathia, organomegalia,

endocrinopathia, monoklonális plazmasejtek eltérése, bőrelváltozások; TAFRO = (thrombocytopenia, anasarca, fever, reticulin fibrosis, organomegaly) thrombocytopenia, anasarca, láz, reticulinfibrosis, organomegalia; VATS = (video-assisted thoracoscopic surgery) videoasszisztált torakoszkópos sebészet

A Castleman-betegség, vagy más néven angiofollicularis nyirokcsomó-hyperplasia ritka, nem rosszindulatú lymphoproliferatív betegség [1]. Az elnevezés az amerikai belgyógyász és patológus Benjamin Castlemantól származik, aki 1956-ban írta le a betegséget mint a gátorüregi nyirokcsomó-megnagyobbodás egyik lehetséges okát. Ez a fajta, később unilocularisnak vagy unicentrikusnak elnevezett megjelenési forma típusos szövettani jeleket mutatott: felszaporodott számú lymphoid folliculust a germinalis centrum involúciójával, továbbá jelzett kapilárisproliferációt endothel-hyperplasiával [2]. Több mint 12 év múlva *Fleldrig* leírta a különbségeket a szövettani altípusok között [3]. Időközben pedig az egy helyre lokalizálódó unicentrikus, unilocularis, illetve a több szervrendszert érintő multicentrikus vagy multilocularis formát is elkülönítették [1, 4].

A patogenezis továbbra is tisztázatlan, de a nagy mennyiségű citokin (a leginkább interleukin-6) termelődése kulcsfontosságúnak látszik [5]. Szintén nem ismert az etiológia, ám a humán herpeszvírus-8 és a humán immunodeficientia-vírus (HIV) szerepet játszhat a multilocularis forma kialakulásában [6]. A multicentrikus megjelenés egyik speciális formája az úgynevezett Takatsuki-, más néven Crow-Fukase- vagy POEMS-szindróma, mely polyneuropathia (P), organomegalia (O), endocrinopathia (E), monoklonális plazmasejtek eltérése (M), illetve bőrelváltozások (S) együttes megjelenését jelenti [7]. További multicentrikus forma az úgynevezett TAFRO-szindróma, amikor a Castleman-betegség thrombocytopeniával (T), anasarcával (A), lázzal (F), reticulinfibrosissal (R) és organomegalival (O) társul [8].

A klinikai és szövettani különbségek miatt 2020-ban a Castleman Disease Collaborative Network új klasszifikációs rendszert vezetett be az altípusok elkülönítésére [7–9]:

- 1) unicentrikus Castleman-betegség;
- 2) idiopathiás multicentrikus Castleman-betegség a TAFRO-szindróma részeként vagy önállóan;
- 3) multicentrikus Castleman-betegség a POEMS-szindróma részeként;
- 4) humán herpeszvírus-8-hoz társult, HIV-pozitív és -negatív multicentrikus Castleman-betegség.

A betegség talaján kialakulhat diffúz nagy B-sejtes lymphoma [10], illetve egy ritka daganatnak, a follicularis dendritikus sejtes sarcomának egy része is Castleman-betegség mellett jelenik meg [11].

A becstült incidencia világszerte évente körülbelül 5 eset 1 millió emberre vetítve. Ebből csak az Egyesült Államokban évi 6–8 ezer új esetet regisztrálnak, azonban tekintettel arra, hogy a diagnosztikus kritériumok sokáig

nem voltak egyértelműek, a pontos számok mindmáig ismeretlenek [12–14]. Az egyes altípusok incidenciája jelentősen eltér országonként. Az Egyesült Államokban az esetek 75%-a unilocularis, míg Japánban 70% a multilocularis forma megjelenési aránya. Az eltérés oka mindmáig tisztázatlan [13]. Az unilocularis forma a leginkább 30 és 40 éves kor között fordul elő, és minimális női predominancia mutatkozik. A multilocularis forma inkább idősebb férfiakat érint, a HIV-hez társult forma azonban fiatalokban fordul elő gyakrabban [14].

Az unilocularis Castleman-betegség a leggyakrabban a gátorüregi nyirokcsomókat érinti, ritkábban fordul elő a nyakon, a hónaljban, a hasüregben vagy a kismedencében [15]. Általában tünetszegény, és véletlenül, szűrőre vagy mellékletként ismerik fel. A nyirokcsomó-konglo-

1. táblázat | Az idiopathiás multicentrikus Castleman-betegség diagnosztikus kritériumai az International Working Group for Idiopathic Multicentric Castleman Disease ajánlása alapján [18]

Major kritériumok	
• Nyirokcsomók az idiopathiás multicentrikus Castleman-betegségnek megfelelő hisztopatológiai jellemzőkkel	
• Megnagyobbodott nyirokcsomók (rövidebb átmérő ≥ 1 cm) ≥ 2 nyirokcsomó-régióban	
Minor kritériumok	
<i>Laborértékek</i>	
• Emelkedett CRP vagy vörösvérsejt-szedimentáció	
• Anaemia	
• Thrombocytopenia vagy thrombocytosis	
• Hypoalbuminaemia	
• Renalis diszfunkció vagy proteinuria	
• Poliklonális hypergammaglobulinaemia	
<i>Klinikai tünetek</i>	
• B-tünet	
• Hepato- vagy splenomegalia	
• Folyadékgyülem	
• Eruptív 'cherry' haemangiomas	
• Ibolyaszínű papulák	
• Lymphocytás interstitialis pneumonitis	
Diagnózismegerősítő jellemzők	
• Emelkedett IL6, VEGF, IgA, IgE, LDH és/vagy B2M	
• Reticularis fibrosis a csontvelőben	
• Egyéb kapcsolódó eltérések: paraneoplasticus pemphigus, bronchiolitis obliterans organizáló pneumoniával, autoimmun cytopeniák, polyneuropathia, inflammatoricus myoblasticus tumor	
Kizáró kritériumok	
• Infekciók: HHV8, EBV, CMV, toxoplasmosis, HIV, aktív tuberculosis	
• Autoimmun/autoinflammatoricus betegségek: szisztémás lupus erythematosus, rheumatoid arthritis, felnőttkori Still-betegség, juvenilis idiopathiás arthritis, autoimmun lymphoproliferatív szindróma	
• Malignitás: lymphoma, myeloma multiplex, POEMS-szindróma, primer nyirokcsomó-plasmocytoma, follicularis dendritikus sejtes sarcoma	

B2M = béta-2-mikroglobulin; CMV = cytomegalovírus; CRP = C-reaktív protein; EBV = Epstein-Barr-vírus; HHV8 = humán herpeszvírus-8; HIV = humán immunodeficientia-vírus; IgA = immunglobulin-A; IgE = immunglobulin-E; IL6 = interleukin-6; LDH = laktátdehidrogenáz; VEGF = vascularis endothelialis növekedési faktor

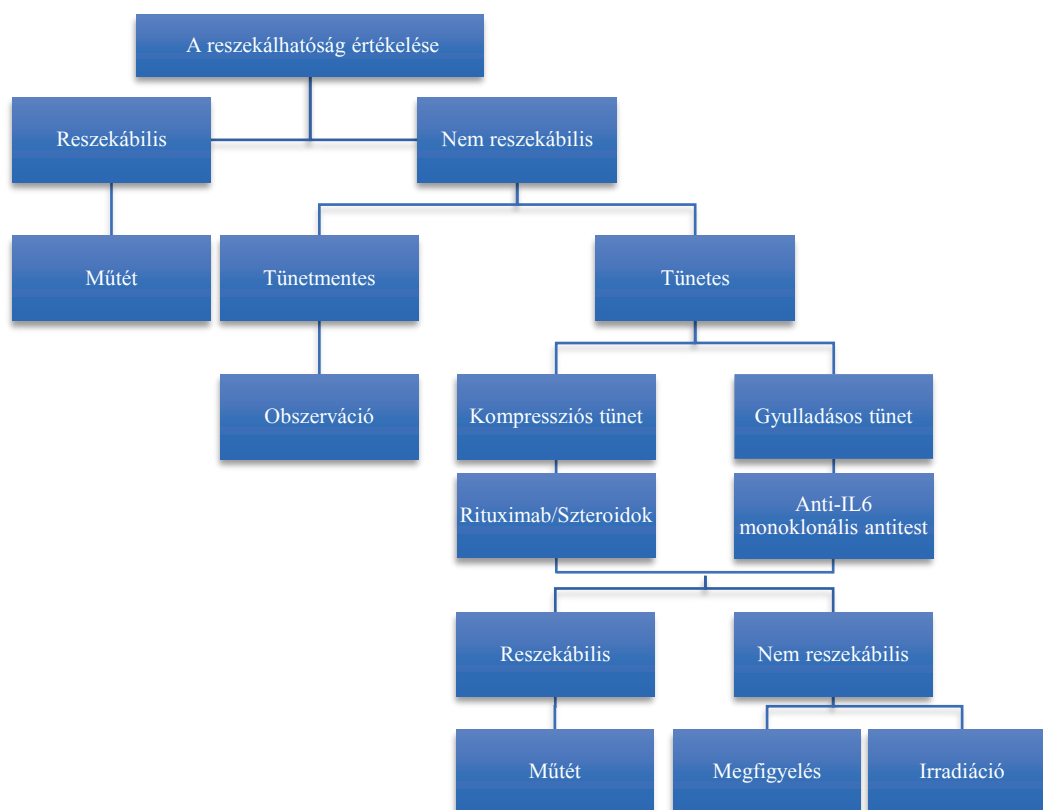
merátumok nyomási tüneteket okozhatnak a környező szervekben, ami aspecifikus tüneteket okozhat, a leginkább nehézlégzést, köhögést vagy mellkasi fájdalmat [15, 16], esetenként akár tetraplegiát [17]. A diagnosztikus szövettani mintavétel transthoracalisán vagy bronchoszkópia során általában technikailag nehéz, és gyakran vezet hamis negatív eredményhez. A leggyakrabban a nyirokcsomók eltávolítása az eredményes diagnosztikus és terápiás lépés is egyben [16].

A multilocularis Castleman-betegség diagnosztizálásának felállítása meglehetősen nehéz, tekintettel a diffúz lymphadenopathia, a szisztémás gyulladás és a szervi diszfunkciók szerteágazó tünettanára. A laborvizsgálatban található eltérések is nagyobb hangsúlyt kapnak, mint az unilocularis forma esetén. Az International Working Group for Idiopathic Multicentric Castleman Disease major és minor diagnosztikai kritériumokat vezetett be, a diagnózist támogató és kizáró tünetekkel együtt [18] (1. táblázat). A diagnózis felállításához mindkét major és legalább 2 minor kritérium megléte, továbbá minimum 1 laboreltérés szükséges a felsoroltak közül [9].

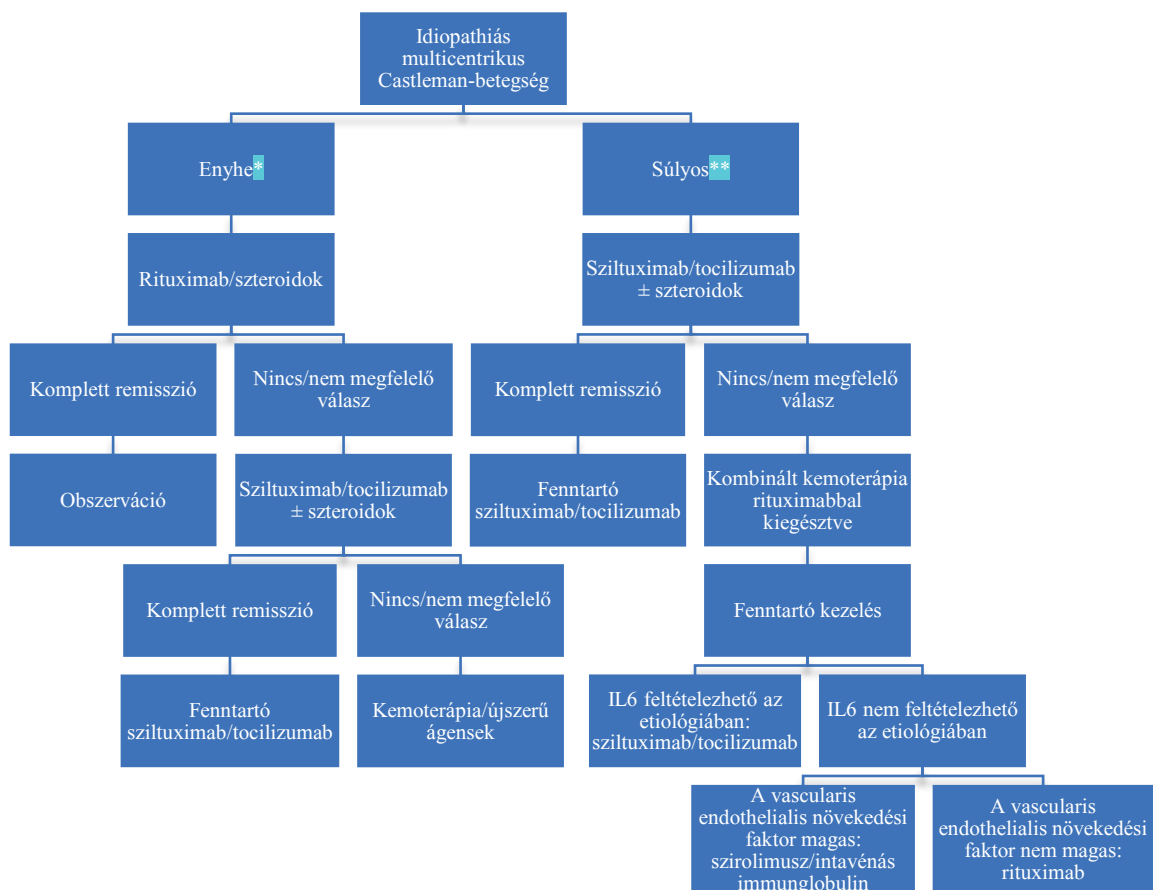
A mellkasról készült komputertomográfiai (CT-) vizsgálaton általában jól körülírt lágyszövet-árnyékként látszik az elváltozás, amely mágnesesrezonancia-vizsgálat (MRI) során mérsékelt vagy erős jelintenzitású a T1-súlyozott, míg hiperintenzív a T2-súlyozott képeken [19]. Ajánlott azonban továbbá a nyak, a has és a kismedence

CT-vizsgálata, hogy a megnagyobbodott nyirokcsomókonglomerátumok száma alapján elkülöníthető legyen az unilocularis forma a multicentrikus megjelenéstől. A fluoro-dezoxi-glükóz pozitronemissziós tomográfia (FDG-PET) segíthet továbbá az érintett nyirokcsomó régiók lokalizációjában, továbbá a daganatos betegségektől való elkülönítésben. A diagnózis felállításához nem utolsósorban szükséges egy tapasztalt patológus vagy hematopatológus segítsége, mert a Castleman-betegség meglehetősen ritka, nincs specifikus markere, továbbá szövettani megjelenése nagyon hasonlít a Hodgkin- vagy az angioimmunoblastos T-sejtes lymphomához [20].

A kezelés alapján különbözik az unilocularis, illetve a multilocularis forma esetén. Unilocularis megjelenés esetén a radikális sebészi eltávolítás a terápia legfontosabb része, és a betegek döntő többségénél nincs szükség további kezelésre. Ilyen esetekben a teljes túlélés 95,3% [15]. Javasolt ép szél az irodalomban nincs megemlítve. A lokális kiújulás ritka, és gyakran összefügg azal, hogy nem az épen történt a kimetszés. Ennek kezelése hasonló, mint az elsődleges betegségé [21]. Azoknak a betegeknek, akik nem alkalmasak a műtéti beavatkozásra, a szisztémás kezelés vagy a sugárterápia egy lehetséges megoldás a betegség lokális kontrolljára (1. ábra) [5, 21]. Ezzel ellentétben a multilocularis forma esetén mindig szisztémás kezelés szükséges. Ebben az esetben a



1. ábra | Az unilocularis Castleman-betegség kezelési algoritmus
IL6 = interleukin-6



Jellegzetességek	*Enyhe (2 az 5-ből)	**Súlyos (2 az 5-ből)
1. ECOG-status	0–1	≥2
2. Glomerularis filtrációs ráta	Normális	<30 ml/min
3. Folyadékretenció	Jelen van	Anasarca, ascites, effúzió
4. Hemoglobín (g/dl)	≥10	≤8
5. Tüdőérintettség	Nincs	Van

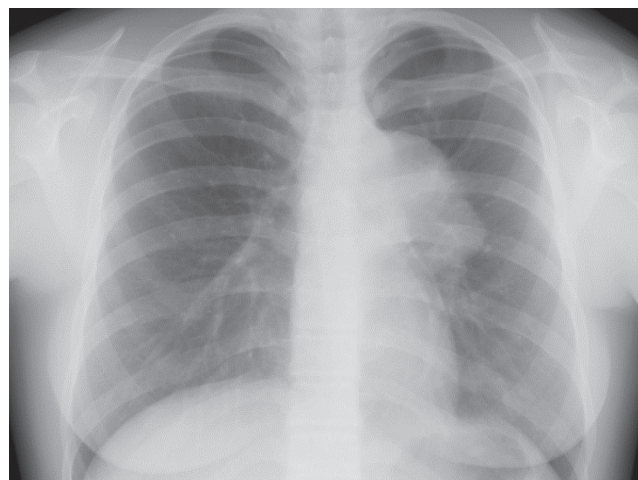
2. ábra | A multilocalis Castleman-betegség kezelési algoritmus
 ECOG = Keleti Kooperatív Onkológiai Csoport; IL6 = interleukin-6

sebészeti beavatkozás vagy a biopszia kizárólag a diagnózis felállítását szolgálja. A kezelési séma alapján enyhe esetekben rituximab és szteroid, míg súlyos esetekben siltuximab/tocilizumab és szteroid kombinációja választandó elsőként (2. ábra) [8].

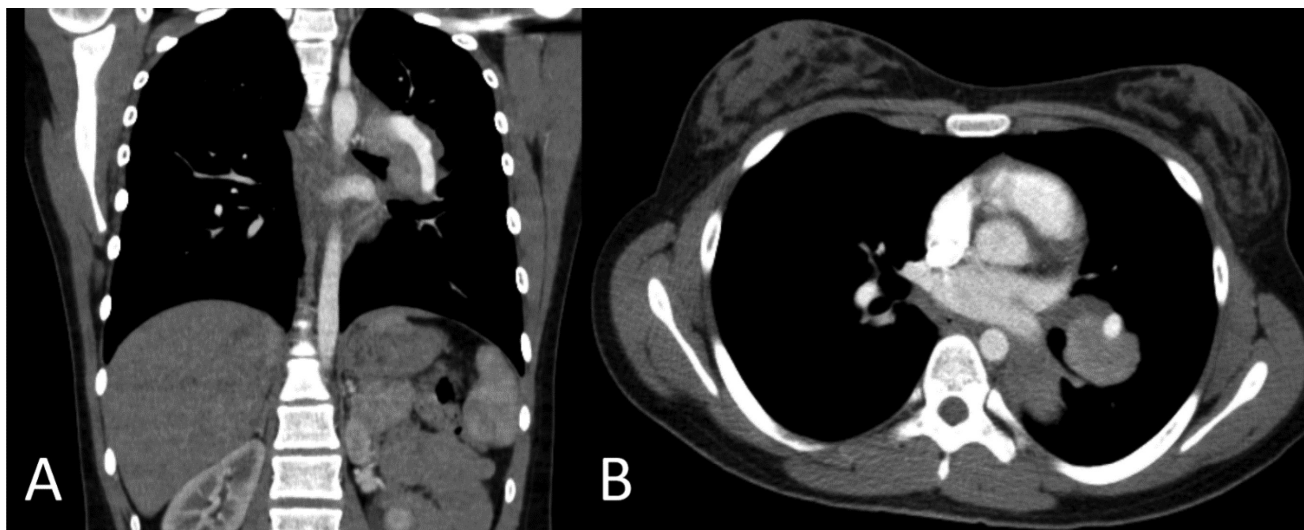
Esetismertetés

15 éves nőbetegünket más intézetből utalták be a mellkasröntgen-felvételen látható, a bal tüdőkapuban elhelyezkedő árnyéktöbblet miatt (3. ábra).

A beteg tünetmentes volt, és nem szerepelt jelentős megbetegedés a kórtörténetében. A mellkas-has-kismencedei CT-vizsgálaton 8,4 × 7,1 × 5,7 cm-es, a bal tüdőkapuban elhelyezkedő terimét írtak le, mely infiltrálta az aorta tunica adventitiáját, betejedt mindkét tüdőlebensbe, körkörösen körbevette a bal tüdőartéria főtrözsét,



3. ábra | Abnormális mediastinalis kiszélesedés a mellkasröntgen-felvételen

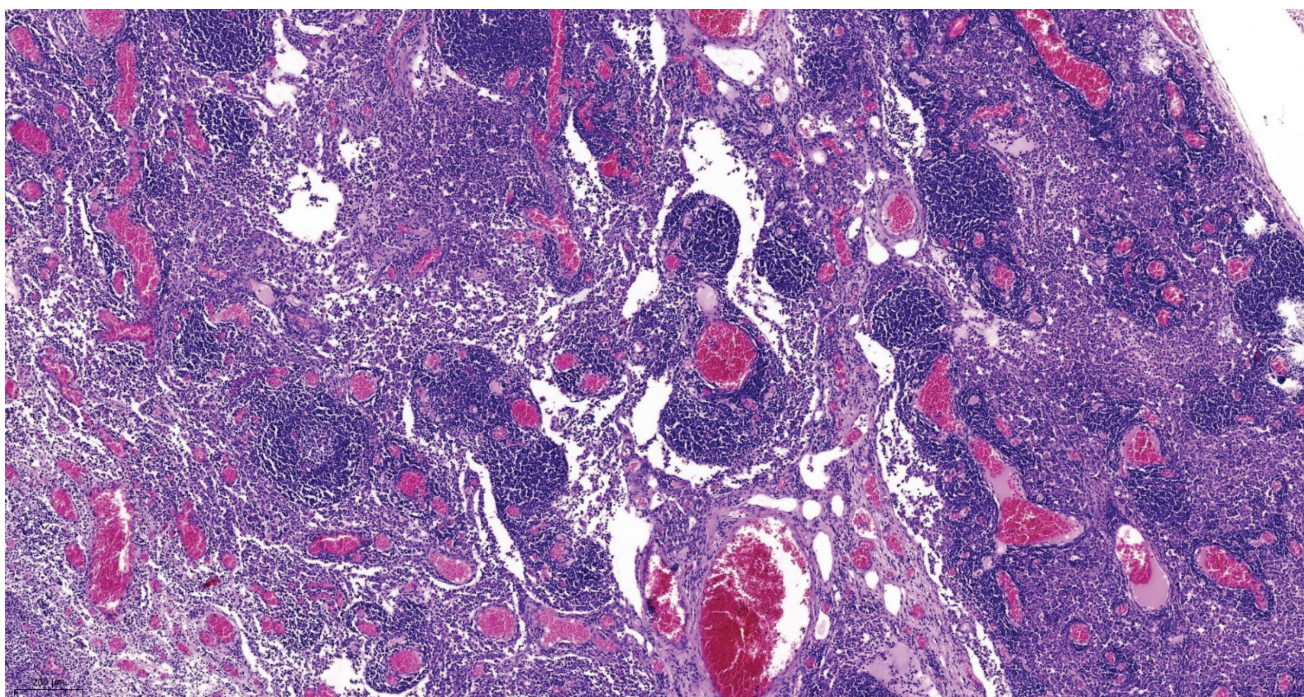


4. ábra | Mellkas-CT-felvétel: a mediastinalis daganat beszűri a bal pulmonalis főtrörzset (A) és a bal alsó tüdőlebeny vénáját (B)
CT = komputertomográfia

és centrálisan involválta a bal alsó tüdőlebeny vénáját (4. ábra).

Más régióban kórosan megnagyobbodott nyirokcsomót nem írtak le. A helyi érzéstelenítésben elvégzett bronchoszkópia során nem találtunk sem direkt, sem indirekt tumorjeleket. A transthoracalis, ultrahangvezérelt 'core' biopsziával nyert szövettani minta megerősítette a Castleman-betegséget. A PET/CT-n az említett nyirokcsomó-konglomerátumon kívül egyéb kóros halmozás nem volt látható, ezért a rendelkezésre álló információk alapján az unilocularis Castleman-betegség diagnózisa volt felállítható. A beteget és családját részletesen tájé-

koztattuk a műtéti beavatkozás szükségességéről, akik ezután beleegyeztek a beavatkozás elvégzésébe. A műtét előtti terápiás terv az éppen történő kimetszés volt, lehetőleg a bal tüdő megkímélésével, de a bal oldali teljes tüdőeltávolítás (pulmonectomia) szükségessége is felmerült a látott CT-képek alapján. Ezen oknál fogva a betegnél a szokásos, műtét előtti vizsgálatokon túl egy sor funkcionális vizsgálatot is elvégeztünk, többek között légzésfunkciós tesztet, kerékpár-ergometriát, vérgáz- és szív-ultrahangvizsgálatot. Mindezek alapján fiatal, jó általános állapotú betegünk alkalmasnak tűnt egyoldali tüdőeltávolításra is.



5. ábra | Az eltávolított terime szövettani képe

A műtét során a bal hónaljban vezetett metszéből tártuk fel a mellüreget (axillaris thoracotomia). Jól körülhatárolt tumormasszát találtunk a bal tüdőkapuban, amely infiltrálta mindkét tüdőlebenyt, az aorta tunica adventitiarétegét, és körkörös körülvette a bal arteria pulmonalis főtrözsét és az alsó tüdővénaát. Miután az adhaesiolysis megtörtént a daganat és az aortafal külső rétege között, megkíséreltük a tumor mobilizációját, ám az olyan szorosan körülvette az arteria pulmonalis trözsét és az alsó tüdővénaát, hogy az ében történő reszekció enucleatióval nem tűnt kivitelezhetőnek. Tekintve, hogy betegünk jó funkcionális állapotban volt, bal oldali teljes tüdőeltávolítást végeztünk, radikális hilusi és mediastinalis nyirokcsomó-dissectióval kiegészítve. További nyirokcsomók eltávolítását a terime mellett azért tartottuk szükségesnek, hogy az unilocularis megjelenési forma szövettanilag is bizonyítást nyerjen, a többi nyirokcsomó érintettségének kizárásával. A szövettani eredmény a tüdő állományát csaknem teljesen elfoglaló daganatszövetet igazolt, melyben lymphoid folliculusok voltak láthatók vascularis proliferációval, az érfalak és a csíracentrumok hyalinisatiójával, melyet a germinális centrumok atresiája kísért (5. ábra). CD20-reakcióval kiszélesedett köpenyzóna volt látható, benne a laza szerkezetű folliculusokban CD21-gyel koncentrikus és sűrű dendritikus reticulumhálózat látszódott. A megváltozott szerkezetű folliculusokat T-sejteket tartalmazó paracortex övezte. CD34-gyel pedig a centrum germinativumokat penetráló, illetve az interfollicularis térben elhelyezkedő erek voltak megfigyelhetők.

A tumormassza ében történő eltávolítása mellett a többi eltávolított nyirokcsomóban nem volt megtalálható a Castleman-betegségre jellemző szövettani kép. A mellkasi drént 1 nap után eltávolítottuk, és eseményte-

len posztoperatív periódus után a beteget 10 nap múlva, jó általános állapotban emittáltuk a kivizsgáló tüdőgyógyintézetbe. 1 hónap után a beteg visszanyerte a napi aktivitáshoz szükséges erőnlétét, és fokozatosan kezdett ismét sportolni. Onkoteam döntése alapján további kezelés nem történt, a beteg az elmúlt 7 év alatt tumor- és recidívamentes maradt.

Megbeszélés

Az unilocularis Castleman-betegség diagnózisa gyakran kihívást jelent a műtét előtt, tekintve az egyedi radiológiai jelek hiányát és a gyakran nem reprezentatív szövettani mintavételi eredményt. Áttekintve az angol nyelvű szakirodalmat, mindössze 14 esetet közöltek, amelynél az unicentrikus forma intrapulmonalis helyezkedett el (2. táblázat) [22–35]. 7 esetben tüdőlebeny-eltávolítás (lobectomy) volt a választott műtét, melyekből két beavatkozás videoasszisztált torakoszkópos technikával (VATS) történt [22, 24, 27–31]. Áttekintésünk során csak 2 olyan esetet találtunk, amelynél pulmonectomy volt a szükséges műtéti eljárás. Az első esetben diffúz vérzés és a jobb alsó, illetve középső tüdővéna infiltrációja volt az indok a jobb oldali pulmonectomy elvégzésére [25]. A másik esetben a jobb oldali tumormassza szoros összeköttetésben volt a jobb felső lebeny hörgőjével, a jobb arteria pulmonalis főtrözsével, illetve extrapariocardialisan beszűrte a felső tüdőlebeny vénáját [33]. Összehasonlítva a mi esetünkkel, a mi betegünknel a bal arteria pulmonalis főtrözs körkörös beszűrtsége miatt kellett elvégezni a bal oldali pulmonectomyt.

Az unilocularis Castleman-betegség esetén áttétképződés nem jellemző, több tudományos közlés alapján [18, 36], amennyiben technikailag kivitelezhető, a tu-

2. táblázat | Az intrapulmonalis elhelyezkedő unilocularis Castleman-betegség operált formáinak irodalmi áttekintése [22–35]

Szerzők	A publikáció éve	Kor (év)	Nem	Elhelyezkedés	Átmérő (cm)	A műtét típusa	VATS
Mohanna és mtsai [35]	2006	54	Nő	Bal felső lebeny	4	Nincs adat	Nincs adat
Yeh és mtsai [28]	2007	42	Férfi	Bal felső lebeny	4,5	Lobectomy	Nem
Tokunaga és mtsai [22]	2009	23	Nő	Bal alsó lebeny	3,5	Lobectomy	Nem
Wang és mtsai [26]	2009	27	Férfi	Bal alsó lebeny	7,5	Excisio	Nem
Racil és mtsai [25]	2009	23	Nő	Jobb középső/alsó lebeny	4,5	Pulmonectomy	Nem
Gunluoglu és mtsai [23]	2011	29	Férfi	Jobb alsó lebeny	5,5	Excisio	Nem
Ota és mtsai [24]	2013	19	Férfi	Jobb alsó lebeny	5	Lobectomy	Igen
Nadir és mtsai [27]	2014	28	Nő	Jobb felső lebeny	5,5	Lobectomy	Nem
Rawashdeh és mtsai [29]	2015	16	Nő	Bal felső lebeny	4,8	Lobectomy	Igen
Haager és mtsai [30]	2016	24	Férfi	Jobb középső/alsó lebeny	3	Lobectomy	Nem
Bacha és mtsai [31]	2018	50	Nő	Jobb felső lebeny	4,8	Lobectomy	Nem
Aoki és mtsai [32]	2019	15	Férfi	Jobb középső/alsó lebeny	4	Excisio	Nem
Kara és mtsai [33]	2021	15	Férfi	Jobb felső lebeny	10	Pulmonectomy	Nem
Shoji és mtsai [34]	2022	21	Nő	Bal felső/alsó lebeny	6,1	Excisio	Nem

VATS = videoasszisztált torakoszkópos sebészet

mor *en bloc* ében történő excíziója/enucleatiója elégséges a tumormentes túlélés biztosításához. Csak ritkán van szükség tüdőlebeny- vagy teljes tüdőeltávolításra [23, 26, 32, 34]. Más esetben megkísérrelhető a tumor átmérőjének csökkentése, hogy az ében történő reszekció eléréséhez minél kevesebb ép tüdőszövetet kelljen eltávolítani. Az ilyen célból adott rituximab mint indukciós immunterápia eredményesnek látszik a daganat méretének csökkentésében és a kiterjesztett műtét elkerülésében [34].

Következtetés

Az elsődleges terápiás cél az unilocularis forma esetében jól ismert, a műtéti technikák közötti választás azonban nehézséget okozhat a daganat kiterjedése miatt. Onkológiai szempontból az elsődleges cél az ében történő reszekció a lokális recidíva megelőzésére. Funkcionális szempontból viszont a műtét során minél több ép tüdőszövet megkímélése a cél. Azon ritka esetekben azonban, amikor a daganat a fő tüdőhilusi képleteket érinti, és a beteg megfelelő cardiopulmonalis funkcióval rendelkezik, a pulmonectomia a megfelelő választandó eljárás.

Anyagi támogatás: A szerzők a közlemény megírásáért nem kaptak anyagi támogatást.

Szerzői munkamegosztás: F. A.: Utánanézett a betegség irodalmának, és elkészítette a kéziratot. K. L.: Részt vett a beteg ellátásában, a műtétben operatorként vett részt. F. J.: Szakmai felügyelő, véleményezte a kéziratot. T. B. végezte a szövettani vizsgálatot. A. K.: Közreműködött a kézirat elkészítésében. A cikk végleges változatát valamennyi szerző elolvasta és jóváhagyta.

Érdekeltségek: A szerzőknek nincsenek érdekeltségeik.

Irodalom

- Frizzera G, Banks PM, Massarelli G, et al. A systemic lymphoproliferative disorder with morphologic features of Castleman's disease: pathological findings in 15 patients. *Am J Surg Pathol.* 1983; 7: 211–231.
- Castleman B, Iverson L, Menendez VP. Localized mediastinal lymphnode hyperplasia resembling thymoma. *Cancer* 1956; 9: 822–830.
- Flendrig JA, Schillings PH. Benign giant lymphoma: the clinical signs and symptoms. *Folia Med Neerl.* 1969; 12: 119–120.
- Weisenburger DD, Nathwani BN, Winberg CD, et al. Multicentric angiofollicular lymph node hyperplasia: a clinicopathologic study of 16 cases. *Hum Pathol.* 1985; 16: 162–172.
- Chronowski GM, Ha CS, Wilder RB, et al. Treatment of unicentric and multicentric Castleman disease and the role of radiotherapy. *Cancer* 2001; 92: 670–676.
- Malnati MS, Dagna L, Ponzoni M, et al. Human herpesvirus 8 (HHV-8/KSHV) and hematologic malignancies. *Rev Clin Exp Hematol.* 2003; 7: 375–405.
- Dispenzieri A. POEMS syndrome: 2019 update on diagnosis, risk stratification, and management. *Am J Hematol.* 2019; 94: 812–827.
- Gündüz E, Özdemir N, Bakanay M, et al. A rare lymphoproliferative disease: Castleman disease. *Turk J Hematol.* 2021; 38: 314–320.
- Dispenzieri A, Fajgenbaum DC. Overview of Castleman disease. *Blood* 2020; 135: 1353–1364.
- Gergely L, Illés Á. Recent advances in the understanding and treatment of diffuse large B-cell lymphoma. [A diffúz nagy B-sejtes lymphoma modern szemlélete és kezelése.] *Orv Hetil.* 2016; 157: 1232–1241. [Hungarian]
- Jenei A, Csomor J, Sági Z. A case of follicular dendritic cell sarcoma with challenging morphology. [Megtévesztő morfológiájú follicularis dendritikus sejtes sarcoma esete.] *Hematol Transzfuz.* 2021; 54: 116–117. [Hungarian]
- Simpson D. Epidemiology of Castleman disease. *Hematol Oncol Clin North Am.* 2018; 32: 1–10.
- Carbone A, Borok M, Damania B, et al. Castleman disease. *Nat Rev Dis Primers* 2021; 7: 84.
- Soumerai JD, Sohani AR, Abramson JS. Diagnosis and management of Castleman disease. *Cancer Control* 2014; 21: 266–278.
- Mitsos S, Stamatopoulos A, Patrini D, et al. The role of surgical resection in unicentric Castleman's disease: a systematic review. *Adv Respir Med.* 2018; 86: 36–43.
- Wong RS. Unicentric Castleman disease. *Hematol Oncol Clin North Am.* 2018; 32: 65–73.
- Németh T, Pécsy B, Gécz T, et al. Successful multidisciplinary management of tetraplegia with a thoracic operation. Unicentric, mediastinal Castleman disease. [Tetraplegia sikeres multidiszciplináris kezelése mellkassebészeti műtéttel. Unicentrikus mediastinalis Castleman-betegség esete.] *Orv Hetil.* 2020; 161: 33–38. [Hungarian]
- van Rhee F, Voorhees P, Dispenzieri A, et al. International, evidence-based consensus treatment guidelines for idiopathic multicentric Castleman disease. *Blood* 2018; 132: 2115–2124.
- Madan R, Chen JH, Trotman-Dickenson B, et al. The spectrum of Castleman's disease: mimics, radiologic pathologic correlation and role of imaging in patient management. *Eur J Radiol.* 2012; 81: 123–131.
- Abramson JS. Diagnosis and management of Castleman disease. *J Natl Compr Canc Netw.* 2019; 17: 1417–1419.
- Van Rhee F, Oksenhendler E, Srkalovic G, et al. International evidence-based consensus diagnostic and treatment guidelines for unicentric Castleman disease. *Blood Adv.* 2020; 4: 6039–6050.
- Tokunaga T, Kadota Y, Utsumi T, et al. Castleman's disease arising from an intrapulmonary lymph node. *Gen Thorac Cardiovasc Surg.* 2009; 57: 562–565.
- Gunluoglu G, Olcmen A, Sokucu SN, et al. Intrapulmonary-located Castleman's disease, which was surgically resected without pulmonary resection. *Ann Thorac Cardiovasc Surg.* 2011; 17: 580–583.
- Ota H, Kawai H, Matsuo T. Unicentric Castleman's disease arising from an intrapulmonary lymph node. *Case Rep Surg.* 2013; 2013: 289089.
- Racil H, Cheikh Rouhou S, Ismail O, et al. Castleman's disease: an intrapulmonary form with intrafissural development. *Sci World J.* 2009; 9: 940–945.
- Wang SH, Ruan Z, Huang HL, et al. A rare case of Castleman disease presenting as pulmonary mass mimicking central pulmonary malignancy. *Chin Med J (Engl).* 2009; 122: 990–991.
- Nadir A, Colak N, Oktener A, et al. Isolated intrapulmonary Castleman's disease: a case report, review of the literature. *Ann Thorac Cardiovasc Surg.* 2014; 20(Suppl): 689–691.
- Yeh CM, Chou CM, Wong LC. Castleman's disease mimicking intrapulmonary malignancy. *Ann Thorac Surg.* 2007; 84: e6–e7.
- Rawashdeh B, Meyer M, Yimin D. Unicentric Castleman's disease presenting as a pulmonary mass: a diagnostic dilemma. *Am J Case Rep.* 2015; 16: 259–261.

- [30] Haager B, Kayser G, Schmid S, et al. Intrapulmonary Castleman's disease pretending to be a lung cancer-work up of an intrapulmonary tumour. *Ann Thorac Cardiovasc Surg.* 2016; 22: 258–260.
- [31] Bacha S, Zribi H, Habibech S, et al. Unicentric Castleman's disease: an uncommon cause of chronic cough. *Tunis Med.* 2018; 96: 148–151.
- [32] Aoki M, Kamimura G, Umehara T, et al. Tumor enucleation for Castleman's disease in the pulmonary hilum: a case report. *Surg Case Rep.* 2019; 5: 95.
- [33] Kara M, Ozkan B, Ulker M, et al. Intrapericardial pneumonectomy for unicentric hilar castleman disease. *Acta Chir Belg.* 2021; 121: 441–444.
- [34] Shoji F, Takase K, Kozuma Y, et al. Induction immunotherapy followed by surgery for hilar unicentric Castleman disease. *Thor Cancer* 2022; 13: 1722–1725.
- [35] Mohanna S, Sanchez J, Ferrufino JC, et al. Characteristics of Castleman's disease in Peru. *Eur J Intern Med.* 2006; 17: 170–174.
- [36] Koa B, Borja AJ, Aly M, et al. Emerging role of 18F-FDG PET/CT in Castleman disease: a review. *Insights Imaging* 2021; 12: 35.

(Farkas Attila dr.,
Szombathely, Markusovszky u. 5.; 9700
e-mail: attilahungary87@gmail.com)

„Quod fugere credas saepe solet occurrere.”
(Amiről azt hinnénk, már múltóban van, gyakran bukkan fel újra hirtelen.)

A cikk a Creative Commons Attribution 4.0 International License (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>) feltételei szerint publikált Open Access közlemény, melynek szellemében a cikk bármilyen médiumban szabadon felhasználható, megosztható és újraközölhető, feltéve, hogy az eredeti szerző és a közlés helye, illetve a CC License linkje és az esetlegesen végrehajtott módosítások feltüntetésre kerülnek. (SID_1)