

Случай из практики

УДК 616-006

ЛИМФАНГИОМА С АТИПИЧНЫМ РАСПОЛОЖЕНИЕМ У РЕБЕНКА

В. О. Трунов^{1,2}, кандидат медицинских наук,
М. Ю. Козлов¹, кандидат медицинских наук,
И. В. Твердов²,
А. О. Шомина²,
А. М. Сиднева^{2*},
В. В. Зайцева²

¹ ГБУЗ города Москвы «Морозовская детская городская клиническая больница Департамента здравоохранения города Москвы», 119049, Россия, г. Москва, 4-й Добрынинский переулок, д. 1/9

² ФГАОУ «Российский национальный исследовательский медицинский университет им. Н. И. Пирогова», 117997, Россия, г. Москва, ул. Островитянова, д. 1

РЕЗЮМЕ Приведен случай редкой патологии – лимфангиомы с бессимптомным течением с атипичным расположением в области желудка у ребенка семи лет. Пациенту выполнена лапаротомия, удалено образование в брюшной полости. Послеоперационный период осложнился спаечной кишечной непроходимостью.

Ключевые слова: лимфангиома, атипичное расположение, брюшная полость.

* Ответственный за переписку: (corresponding author): sidn-aleksa@mail.ru.

Лимфангиомы – неспецифические мальформации, состоящие из расширенных лимфатических сосудов и занимающие промежуточное положение между опухолью и пороком развития [1–3].

Этиология данного заболевания связана с нарушением закладки и последующего развития лимфатических сосудов, как правило, в эмбриональном периоде. Клиническая манифестация чаще приходится на период новорожденности и ранний детский возраст, когда диагностируется 80–90% от всех случаев лимфангиом [4, 5]. Частота данных образований составляет один случай на 2–6 тыс. новорожденных [4], в то время как у взрослых – один на 200–250 тыс. [6].

Наиболее распространенная клиническая классификация лимфангиом основана на морфологических особенностях опухоли, что определяет тактику диагностики и лечения больных. Выделяют три основных варианта строения лимфангиом: кожную, кавернозную, кистозную [7–9].

Строение, локализация и размеры лимфангиомы – основные факторы, определяющие клиническую картину заболевания. Медленный рост (иногда синхронный с ростом ребенка) и/или глубокое расположение образований объясняют стертую клиническую картину и бессимптомное течение, в таких случаях заболевание выявляют случайно. Однако

лимфангиомы обладают способностью к интенсивному увеличению, что приводит к косметическим дефектам, воспалению, перфорации, сдавлению окружающих органов и тканей, лимфорее, симптомам, имитирующим синдром острого живота, что в некоторых случаях требует неотложного вмешательства после непродолжительного обследования (ультразвукового исследования (УЗИ), компьютерной томографии) [10].

Результаты УЗИ с цветовым доплеровским картированием и МСКТ/МРТ являются основой построения диагностического алгоритма при данной патологии. Верификация диагноза лимфангиомы осуществляется методом иммуногистохимического исследования, который применим, как правило, только после оперативного лечения. Специфичными для данного заболевания являются лимфатический маркер подопланин / D2-40, а также варибельная экспрессия CD31, CD34 [2, 11].

Радикальное удаление лимфангиомы является предпочтительным вследствие одномоментности и высокой эффективности [5]. Однако при сложной локализации опухоли нередко возникают технические трудности при её резекции в пределах здоровых тканей. Вследствие этого частота рецидивов лимфангиом при полном удалении опухоли составляет 12%, при частичном – 53% [12].

Наиболее часто лимфангиомы располагаются в области лица и шеи (75%), реже – в подмышечной области (20%), брюшной полости и ретроперитонеальном пространстве (2%), конечностях (2%), в средостении (1%) [2, 3, 13]. Локализация в желудке при данной патологии встречается крайне редко. При анализе литературы за период 1954–2018 гг. (база данных PubMed) в результате поиска по ключевому слову «lymphangioma» обнаружено 6442 источника, по ключевым словам «lymphangioma, stomach» – 77, в которых описано 25 случаев лимфангиомы желудка, в том числе у двоих детей [14].

Мы приводим собственное клиническое наблюдение пациента К. 7 лет. Ребенок поступил в ГБУЗ «Морозовская детская городская клиническая больница Департамента здравоохранения города Москвы» в плановом порядке в связи с обнаружением объемного образования при УЗИ органов брюшной полости во время плановой диспансеризации. При поступлении ребенок был активен, жалоб не предъявлял.

При УЗИ выявлено кистозное образование в эпигастриальной области с выраженной капсулой, множественными тонкими внутренними перегородками, прилегающее к малой кривизне желудка и абдоминальному отделу пищевода. В полости образования имелось жидкостное содержимое с мелкодисперсным компонентом. При проведении цветового доплеровского картирования кровотока в капсуле и перегородках представлен в виде единичных пикселей.

По данным МРТ у ребенка визуализировалось многокамерное кистозное образование, расположенное в забрюшинном пространстве слева, размерами 6 × 8,5 × 11 см, с ровными нечеткими контурами, включающее кистозный и солидный компоненты.

С целью уточнения локализации и связи образования с окружающими органами выполнена диагностическая лапароскопия. Визуализировалось кистозное образование размерами 12 × 6,5 × 8 см, интимно спаянное с задней стенкой желудка вдоль малой кривизны вплоть до пищевода. После оценки размеров и локализации образования в связи с прогнозируемыми техническими трудностями и высоким риском осложнений при удалении лимфангиомы с помощью мини-инвазивного доступа принято решение о необходимости конверсии.

Выполнена верхнесрединная лапаротомия. После мобилизации абдоминального отдела пищевода,

левой доли печени, рассечения сальниковой сумки убедились в отсутствии связи образования с поджелудочной железой. Далее методом тупой препаровки образование было отделено от пищевода, стенки желудка в области дна и вдоль малой кривизны – в пределах здоровых тканей. Выполнена резекция лимфангиомы, желудок ушит двухрядным швом, дефект желудочно-пищеводного перехода после ушивания укрыт дном желудка, пищевод фиксирован узловыми швами к ножкам диафрагмы. Для декомпрессии желудка сформирована гастростома и подвесная еюностома по Витцелю на расстоянии около 20 см от связки Трейтца.

Гастро- и еюностома закрыты на 11-е сутки после операции. На 20-е сутки появились жалобы на боли в животе, преимущественно в околопупочной области, задержку стула. При рентгенографии органов брюшной полости с контрастированием выявлены множественные разнокалиберные уровни жидкости и газа, расширенные, заполненные кишечным содержимым петли тонкой кишки преимущественно слева. При динамическом УЗИ органов брюшной полости визуализирована свободная жидкость в межпетлевых пространствах и правом латеральном канале. В связи с подозрением на спаечную кишечную непроходимость выполнена диагностическая лапароскопия, висцеролиз, санация и дренирование брюшной полости.

В послеоперационном периоде данных за рецидив опухоли не выявлено, пассаж по желудочно-кишечному тракту удовлетворительный.

Выполнено иммуногистохимическое исследование иссеченного образования, результат исследования – кистозная лимфангиома.

Ребенок выписан на 26-е сутки после первой операции (на 6-е сутки после второй) в удовлетворительном состоянии.

На момент написания данной статьи период наблюдения за ребенком после операции составил два года.

В заключение хочется отметить, что лимфангиома желудка – крайне редкая патология, чаще с бессимптомным течением в связи с медленным ростом и особенностями локализации образования, выявляющаяся случайно. У данного пациента выжидательная тактика была сопряжена с риском внезапного развития ряда осложнений в связи с частым прорастанием лимфангиом в стенки органов или крупные сосудисто-нервные пучки.

ЛИТЕРАТУРА

1. Кистозная лимфангиома поджелудочной железы, лучевые методы исследования / Г. Г. Кармазановский [и др.] // Медицинская визуализация. – 2009. – № 3. – С. 95–100.
2. WHO Classification of tumours of soft tissue and bone. – 4th ed. / C. D. Fletcher, J. A. Bridge, P. Hogendoorn, F. Mertens. – Geneva 27, Switzerland : WHO Press, 2013. – 144 p.
3. Лимфангиома промежности у девочки 8 лет (клиническое наблюдение) / М. А. Чундокова [и др.] // Репродуктивное здоровье детей и подростков. – 2015. – № 1. – С. 44–49.
4. Zhuang, K. A rare, giant, cystic, and cavernous lymphangioma originated from the stomach in a young woman / K. Zhuang, X. Jiang, S. Huang // J. Gastrointest Surg. – 2018. – Vol. 23. – P. 38–40.
5. Детская онкология : нац. рук-во / под ред. М. Д. Алиева, В. Г. Полякова, Г. Л. Менткевич, С. А. Маякова. – М. : РОНЦ, 2012. – 605 с.
6. An unusual cause of «appendicular pain» in a young girl: mesenteric cystic lymphangioma / G. Francesco, C. Alfonso, A. Antonio, A. Giovanni // J. of Surgical Case Reports. – 2012. – Vol. 6. – P. 15–18.
7. Cystic lymphangioma of the chest wall in a 5-year-old male patient: a rare and atypical localization – a case report and comprehensive review of the literature / D. Patoulas [et al.]. – Case Reports in Pediatrics, 2017.
8. Лечение лимфангиомы лазером на парах меди / С. В. Ключарева [и др.] // Российский журн. кожных и венерических болезней. – 2016. – № 6. – С. 365–369.
9. Лимфгемангиома средостения, симулировавшая тимомегалию, у ребенка / В. К. Литовка, И. П. Журило, А. Ю. Гунькин, К. В. Латышов // Здоровье ребенка. – 2009. – № 1. – С. 31–32.
10. Редкие случаи лимфангиом брюшной полости большого размера у взрослых / В. А. Беленький [и др.] // Хирургия Украины. – 2015. – № 2. – С. 121–126.
11. Prenatal ultrasound evaluation and outcome of pregnancy with fetal cystic hygromas and lymphangiomas / Y. N. Chen, C. P. Chen, C. J. Lin, S. W. Chen // J. Med Ultrasound. – 2017. – Vol. 25(1). – P. 12–15.
12. Поляев, Ю. А. Интервенционные методы лечения лимфангиом у детей / Ю. А. Поляев, А. В. Петрушин, Р. В. Гарбузов // Детская хирургия. – 2011. – № 5. – С. 41–43.
13. Cystic lymphangioma of the adrenal gland: report of a case and review of the literature / G. Joliat [et al.] // World J. of Surgical Oncology. – 2015. – № 2. – P. 12–17.
14. Giant cystic lymphangioma originating from the cardia of the stomach: A case report / G. Chen [et al.] // Exp. Ther. Med. – 2016. – Vol. 11 (5). – P. 1943–1946.

LYMPHANGIOMA WITH ABNORMAL LOCATION IN A CHILD

V. O. Trunov, M. Yu. Kozlov, I. V. Tverdov, A. O. Shominova, A. M. Sidneva, V. V. Zaitseva

ABSTRACT The authors adduced the case of rare abnormality namely lymphangioma with asymptomatic course with abnormal location in the stomach area in a child aged 7 years old. The patient undergone laparotomy and malformation in abdominal cavity was dissected. The postoperative period was complicated by adhesive obstruction.

Key words: lymphangioma, abnormal location, abdominal cavity.