

ISSN 1560-9510 (Print)
ISSN 2412-0677 (Online)

Детская хирургия

Russian Journal
of Pediatric Surgery



4

Том 25 • 2021

Volume 25 • Issue 4 • 2021

ISSN 1560-9510



<https://ps.elpub.ru>

ОАО «ИЗДАТЕЛЬСТВО
"МЕДИЦИНА"»



МОСКВА

Журнал «Детская хирургия» включён
в Russian Science Citation Index
на базе Web of Science,
представлен в международном
информационно-справочном издании
Ulrich's International Periodicals Directory

Журнал зарегистрирован Федеральной
службой по надзору в сфере связи,
информационных технологий и массовых
коммуникаций. Свидетельство
№ ФС 77-37082 от 05.08.2009 г.

Все права защищены.

Никакая часть издания не может быть
воспроизведена без согласия редакции.

При перепечатке публикаций с согласия
редакции ссылка на журнал
«Детская хирургия» обязательна.

Заведующая редакцией

Валентина Ивановна Легонькова
Тел.: +7 915 205 95 44
E-mail: legonkova.v@yandex.ru

Сайт журнала:

<https://ps.elpub.ru>

Подписка на электронную версию журнала:

<https://www.ivis.ru>

ООО «ИВИС»

Тел.: +7 495 777 65 57

Факс: +7 499 232 68 81

E-mail: sales@ivis.ru

(абонентам будут доступны
выпуски журнала с 2014 г.)

Почтовый адрес

115088, Москва, ул. Новоостاپовская,
д. 5, строение 14

Отдел рекламы

Тел. +7 915 205 95 44

E-mail: legonkova.v@yandex.ru

Ответственность за содержание рекламных
материалов несут рекламодатели.

Переводчик А.А. Алексеева

Техническое редактирование, вёрстка,
обработка графического материала
С.М. Мешкорудникова

ISSN 1560-9510 (Print)

ISSN 2412-0677 (Online)

Детская хирургия. 2021. 25(4). С. 227–290.

ЛР № 010215 от 29.04.97

Сдано в набор 18.07.2021.

Подписано в печать 16.08.2021.

Формат 60 × 88 1/8. Печать офсетная.

Печ. л. 8,0. Усл. печ. л. 7,44.

Уч.-изд. л. 4,37. Цена свободная.

© ОАО «Издательство "Медицина"», 2021



СОЮЗ ПЕДИАТРОВ РОССИИ

Детская хирургия.

Журнал им. Ю.Ф. Исакова

Научно-практический журнал

Выходит один раз в 2 месяца

Основан в 1997 г.

Том 25 • 4 • 2021

Главный редактор Л.М. РОШАЛЬ,
доктор мед. наук, профессор

Зам. гл. редактора С.М. Шарков, доктор мед. наук, профессор

Отв. секретарь О.В. Карасева, доктор мед. наук

Научный редактор А.Ю. Разумовский,
доктор мед. наук, профессор, член-корр. РАН

РЕДАКЦИОННАЯ КОЛЛЕГИЯ:

А.Е. АЛЕКСАНДРОВ, д.м.н., проф. (Москва), В.Г. АМЧЕСЛАВСКИЙ, д.м.н.,
проф. (Москва), И.И. АФУКОВ, к.м.н., доцент (Москва), В.Г. БАИРОВ, д.м.н.,
проф. (Санкт-Петербург), В.Ф. БЛАНДИНСКИЙ, д.м.н., проф. (Ярославль),
Л. БОЙ, д.м.н., проф. (Неймеген, Нидерланды), В.А. ВЕЧЕРКИН, д.м.н., проф.
(Воронеж), С.Г. ВРУБЛЕВСКИЙ, д.м.н., проф. (Москва), Д.Ю. ВЫБОРНОВ,
д.м.н., проф. (Москва), В.Г. ГЕЛЬДТ, д.м.н., проф. (Москва), Ж.-М. Ги, д.м.н.,
проф. (Марсель, Франция), А.А. ГУМЕРОВ, д.м.н., проф. (Уфа), А.Ф. ДРОНОВ,
д.м.н., проф. (Москва), С.Н. ЗОРКИН, д.м.н., проф. (Москва), С.Л. КОВАРСКИЙ,
д.м.н., проф. (Москва), В.А. КОЖЕВНИКОВ, д.м.н., проф. (Барнаул),
Ю.А. КОЗЛОВ, д.м.н., проф. (Иркутск), Ю.И. КУЧЕРОВ, д.м.н., проф.
(Москва), А.В. ЛОПАТИН, д.м.н., проф. (Москва), Дж. МАЙР, д.м.н., проф.
(Базель, Швейцария), В.А. МИТИШ, к.м.н., доцент (Москва), Д.А. МОРОЗОВ,
д.м.н., проф. (Москва), А.Е. НАЛИВКИН, д.м.н. (Москва), Т.К. НЕМИЛОВА,
д.м.н., проф. (Санкт-Петербург), В.А. НОВОЖИЛОВ, д.м.н., проф. (Иркутск),
А.Б. ОКУЛОВ, д.м.н., проф. (Москва), И.В. ПОДДУБНЫЙ, д.м.н., проф.
(Москва), А.В. ПОДКАМЕНЕВ, д.м.н., проф. (Санкт-Петербург), Ю.А. ПОЛЯЕВ,
д.м.н., проф. (Москва), В.Г. ПОЛЯКОВ, д.м.н., проф., акад. РАН (Москва),
Б.Г. САФРОНОВ, д.м.н., проф. (Иваново), С.М. СТЕПАНЕНКО, д.м.н., проф.
(Москва), Ю.Ю. СОКОЛОВ, д.м.н., проф. (Москва), В.А. ТАРАКАНОВ,
д.м.н., проф. (Краснодар), Ю.В. ТЕН, д.м.н., проф. (Барнаул), Р.М. ТОЙЧУЕВ,
д.м.н., проф. (Ош, Кыргызстан), Р.-Б. ТРЁБС, д.м.н., проф. (Бохум, Германия),
Н.А. ЦАП, д.м.н., проф. (Екатеринбург), А.М. ШАМСИЕВ, д.м.н., проф. (Самарканд,
Республика Узбекистан), С.П. ЯЦЫК, д.м.н., проф., член-корр. РАН (Москва)

*Журнал «Детская хирургия» входит в рекомендуемый ВАК перечень ведущих
рецензируемых научных журналов и изданий, в которых должны быть опубликованы
основные научные результаты диссертаций на соискание учёной степени доктора
и кандидата наук по специальностям: 14.01.19 – Детская хирургия (медицинские
науки), 14.01.20 – Анестезиология и реаниматология (медицинские науки),
14.01.23 – Урология (медицинские науки).*

PUBLISHING HOUSE
"MEDICINE"



The Russian Journal of Pediatric Surgery is included in the Russian Sciepsc Citation Index based on the Web of Science, presented in the international information and reference publication Ulrich's International Periodicals Directory

Media Registration Certificate
PI N 77-37082 from 05.08.2009.

All rights reserved.

No part of the publication can be reproduced without the written consent of editorial office.

Any reprint of publications with consent of editorial office should obligatory contain the reference to the Russian Journal of Pediatric Surgery provided the work is properly cited.

Managing Editor

Valentina I. Legon'kova
Phone: +7 915 205 95 44
E-mail: legonkova.v@yandex.ru

The journal's website:
<https://ps.elpub.ru>

Subscribe to electronic journal version:

<https://www.ivis.ru>

Limited Liability Company "IVIS"
Phone: +7 495 777 65 57
Fax: +7 499 232 68 81
E-mail: sales@ivis.ru
(subscribers will have access to issues of the magazine from 2014).

Postal address

Novoostapovskaya street, 5/14, Moscow,
115088, Russian Federation

Advertising

Phone: +7 915 205 95 44
E-mail: legonkova.v@yandex.ru
The content of the advertisements is the advertiser's responsibility.

Translator: A.A. Alekseeva

Technical editing, layout, processing of graphic material S.M. Meshkorudnikova

ISSN 1560-9510 (Print)
ISSN 2412-0677 (Online)
Russian Journal of Pediatric Surgery. 2021.
25(4). C. 227-290.

Put in a set: 18.07.2021.
Signed to the press: 16.08.2021.
Format 60 × 88 1/8. Offset printing.
Printed sheet 8.0. Free price.

© Open Joint-Stock Company
"Publishing "Medicine", 2021



THE UNION OF PEDIATRICIANS OF RUSSIA

Detskaya Khirurgiya.

Journal im. Yu.F. Isakova

Yu.F. Isakov Russian Journal of Pediatric Surgery

Scientific and practical journal
Published once every 2 months
Since 1997

Volume 25 • 4 • 2021

Editor-in-Chief

L.M. ROSHAL, MD, PhD, DSc, Prof.

Assistant Editor-in-Chief

S.M. Sharkov, MD, PhD, DSc, Prof.

Editorial Secretary

O.V. Karaseva, MD, PhD, DSc

Scientific Editor

A.Yu. Razumovskiy, MD, PhD, DSc, Prof.,
Corresponding Member of the RAS

EDITORIAL BOARD:

A.E. ALEKSANDROV, MD, PhD, DSc (Moscow), **V.G. AMCHESLAVSKIY**, MD, PhD, DSc (Moscow), **I.I. AFUKOV**, MD, PhD (Moscow), **V.G. BAIROV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Sankt-Petersburg), **V.F. BLANDINSKIY**, MD, PhD, DSc, Prof. (Yaroslavl'), **Leo H.D.J. BOOIJ**, MD, PhD, DSc, Prof. (Nijmegen, Holland), **V.A. VECHERKIN**, MD, PhD, DSc, Prof. (Voronezh), **S.G. VRUBLEVSKIY**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **D.Yu. VYBORNOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **V.G. GEL'DT**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **J.-M. GUYS**, MD, PhD, DSc, Prof. (Marseille, France), **A.A. GUMEROV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Ufa), **A.F. DRONOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **S.N. ZORKIN**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **S.L. KOVARSKIY**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **V.A. KOZHEVNIKOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Barnaul), **Yu.A. KOZLOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Irkutsk), **Yu.I. KUCHEROV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **A.V. LOPATIN**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **J. MAYR**, MD, PhD, DSc, Prof. (Basel, Switzerland), **V.A. MITISH**, MD, PhD (Moscow), **D.A. MOROZOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **A.E. NALIVKIN**, MD, PhD, DSc (Moscow), **T.K. NEMILOVA**, MD, PhD, DSc, Prof. (Sankt-Petersburg), **V.A. NOVOZHILOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Irkutsk), **A.B. OKULOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **I.V. PODDUBNY**, MD, PhD, DSc, Prof., **A.V. PODKAMENEV**, MD, PhD, DSc (Sankt-Petersburg), **Yu.A. POLJAEV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow) **V.G. POLYAKOV**, MD, PhD, DSc, Prof., Academician of Russian Academy of Sciences (Moscow), **B.G. SAFRONOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Ivanovo), **S.M. STEPANENKO**, MD, PhD, DSc (Moscow), **Yu.Yu. SOKOLOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow), **V.A. TARAKANOV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Krasnodar), **Yu. V. TEN**, MD, PhD, DSc, Prof. (Barnaul), **R.M. TOICHUEV**, MD, PhD (Osh, Kyrgyzstan), **R.-B. TRÖBS**, MD, PhD, DSc, Prof. (Bochum, Germany), **N.A. TSAP**, MD, PhD, DSc (Ekaterinburg), **A.M. SHAMSIEV**, MD, PhD, DSc, Prof. (Samarkand, Uzbekistan), **S.P. YATSYK**, MD, PhD, DSc, Prof., Corresponding Member of the RAS (Moscow),

The Russian Journal of Pediatric Surgery is included in the list of the leading peer-reviewed scientific journals and publications recommended by the Higher Attestation Commission, in which the main scientific results of dissertations for the degree of doctor should be published and candidate of sciences.

СОДЕРЖАНИЕ

ОРИГИНАЛЬНЫЕ СТАТЬИ

- Козлов Ю.А., Ковальков К.А., Полюян С.С., Барадиева П.Ж., Звонков Д.А., Очиров Ч.Б., Черемнов В.С., Капуллер В.М.* Применение повидон-йода для лечения хилоторакса у новорождённых 230
- Разумовский А.Ю., Митупов З.Б., Рачков В.Е., Степаненко Н.С., Адлер А.В., Куликова Н.В., Стрижова Д.Н.* Сравнительный анализ результатов лечения детей со стенозами верхних дыхательных путей 235
- Комина Е.И., Алхасов А.Б., Русецкий Ю.Ю., Лохматов М.М., Яцык С.П., Ратников С.А., Романова Е.А., Савельева М.С.* Эндоскопические методы лечения стенозов гортани у детей 244
- Киреева Н.Б., Тибилев А.З., Гудкова М.П.* Лечение скрытого полового члена у мальчиков 249

ОБЗОРЫ

- Коротеев В.В., Крестьяшин В.М., Выборнов Д.Ю., Тарасов Н.И., Семенов А.В., Горелова П.А., Карлова Н.А.* Осложнения в хирургии идиопатического сколиоза у детей 254
- Каганцов И.М., Дубров В.И., Сизонов В.В., Баиров В.Г., Сухоцкая А.А.* Агенезия полового члена (афаллия) у мальчиков 260
- Меркулова А.О., Харитонов А.Ю., Карасева О.В., Шавров А.А.* Современные подходы к диагностике и возможности эндоскопического лечения стенозов пищевода у детей 267

КЛИНИЧЕСКАЯ ПРАКТИКА

- Страшинский А.С., Стальмахович В.Н., Кайгородова И.Н., Ли И.Б.* Врождённая кистозно-аденоматозная мальформация нижней доли левого лёгкого в сочетании с интралобарной секвестрацией лёгкого 274
- Малышева Д.А., Сухоцкая А.А., Баиров В.Г., Каганцов И.М., Кохреидзе Н.А., Зазерская И.Е., Овсянников Ф.А.* Хирургические аспекты лечения неонатальных овариальных кист у девочек 278
- Стальмахович В.Н., Кайгородова И.Н., Ли И.Б., Дмитриенко А.П., Страшинский А.С.* Воспалительная миофибробластическая опухоль у детей 284

CONTENTS

ORIGINAL ARTICLES

- Kozlov Yu.A., Kovalkov K.A., Poloyan S.S., Baradieva P.Zh., Zvonkov D.A., Ochirov C.B., Cheremnov V.S., Kapuller V.M.* Povidon-iodine applied for the treatment of chylothorax in children 230
- Razumovsky A.Yu., Mitupov Z.B., Rachkov V.E., Stepanenko N.S., Adler A.V., Kulikova N.V., Strizhova D.N.* A comparative analysis of outcomes after surgical reconstruction of stenoses in the upper respiratory tract in children 235
- Komina E.I., Alkhasov A.B., Rusetsky Yu.Yu., Lokhmatov M.M., Yatsyk S.P., Ratnikov S.A., Romanova E.A., Savelyeva M.S.* Endoscopic treatment of subglottic stenosis in children 244
- Kireeva N.B., Tibilov A.Z., Gudkova M.P.* Treatment of the hidden penis in boys 249

REVIEWS

- Koroteev V.V., Krestyashin V.M., Vybornov D.Yu., Tarasov N.I., Semenov A.V., Gorelova P.A., Karlova N.A.* Complications of surgical treatment of idiopathic scoliosis in adolescents 254
- Kagantsov I.M., Dubrov V.I., Sizonov V.V., Bairov V.G., Sukhotskaya A.A.* Penile agenesis (afallia) in pueros 260
- Merkulova A.O., Kharitonova A.Yu., Karaseva O.V., Shavrov A.A.* Modern approaches to the diagnostics and potentials of endoscopic treatment of esophageal stenoses in children 267

CLINICAL PRACTICE

- Strashinski A.S., Stalmakhovich V.N., Kaygorodova I.N., Li I.B.* Congenital cystic-adenomatous malformations of the lower lobe of the left lung in combination with intralobar pulmonary sequestration 274
- Malysheva D.A., Sukhotskaya A.A., Bairov V.G., Kagantsov I.M., Kokhreidze N.A., Zazerskaya I.E., Ovsyannikov F.A.* Surgical aspects of the treatment of neonatal ovarian cysts in girls 278
- Stalmakhovich V.N., Kaygorodova I.N., Li I.B., Dmitrienko A.P., Strashinski A.S.* Inflammatory myofibroblastic tumor in children 284

ОРИГИНАЛЬНЫЕ СТАТЬИ

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2021

*Козлов Ю.А.^{1,2,3}, Ковальков К.А.⁴, Полюян С.С.⁵, Барадиева П.Ж.¹, Звонков Д.А.³, Очиров Ч.Б.¹, Черемнов В.С.¹, Капуллер В.М.⁶***Применение повидон-йода для лечения хилоторакса у новорождённых**¹ГБУЗ «Иркутская государственная областная детская клиническая больница», 664000, г. Иркутск, Россия;²Иркутская государственная медицинская академия последипломного образования – филиал ФГБОУ ДПО «Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 664049, г. Иркутск, Россия;³ФГБОУ ВО «Иркутский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 664003, г. Иркутск, Россия;⁴МБУЗ «Детская городская клиническая больница», 650056, г. Кемерово, Россия;⁵КГБУЗ «Красноярский краевой клинический центр охраны материнства и детства», 660074, г. Красноярск, Россия;⁶Университетский медицинский центр Ассута, Университет имени Бен-Гуриона, Ашдод, Израиль

Введение. Цель настоящего исследования состоит в демонстрации опыта нехирургического лечения врождённого и приобретённого хилоторакса с использованием повидон-йода у детей.

Материал и методы. В исследовании представлены результаты лечения 10 пациентов с хилотораксом, которым выполнен химический плевродез с использованием препарата повидон-йод. Исследование охватывало период с 2016 по 2020 г. Врождённый характер заболевания был зарегистрирован у 2 пациентов, приобретённая природа заболевания отмечалась у 8 пациентов. Основным показанием к операции являлось отсутствие эффекта на консервативную терапию, включающую отмену кормления и назначение препарата октреотид. Процедура состояла в интраплевральном введении в плевральную полость 4% раствора повидон-йода с расчётной дозой 1 мл/кг и экспозицией раствора на протяжении 4 ч.

Результаты. Процедура интраплеврального введения повидон-йода была эффективной у всех пациентов. Осложнения химического плевродеза были отмечены у 2 пациентов и связаны с отёком лёгкого на стороне введения. Отток лимфы прекратился в среднем на 4-е сутки. Отмечен один неблагоприятный исход, который был обусловлен пороком развития лёгких, несовместимым с жизнью.

Заключение. Интраплевральное введение повидон-йода является эффективным методом лечения хилоторакса у детей.

Ключевые слова: хилоторакс; химический плевродез; повидон-йод

Для цитирования: Козлов Ю.А., Ковальков К.А., Полюян С.С., Барадиева П.Ж., Звонков Д.А., Очиров Ч.Б., Черемнов В.С., Капуллер В.М. Применение повидон-йода для лечения хилоторакса у новорождённых. *Детская хирургия.* 2021; 25(4): 230-234. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-230-234>

Для корреспонденции: Козлов Юрий Андреевич, доктор мед. наук, профессор, главный врач ГБУЗ ИГОДКБ, 664000, г. Иркутск; профессор кафедры детской хирургии ФГБОУ ВО ИГМУ, 664003, г. Иркутск; профессор кафедры ГБОУ ВПО ИГМАПО, 664049, г. Иркутск. E-mail: yuriherz@hotmail.com

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Козлов Ю.А. – концепция и дизайн исследования, написание текста; Полюян С.С., Барадиева П.Ж., Звонков Д.А. – сбор и обработка материала; Ковальков К.А. – статистический анализ; Очиров Ч.Б., Черемнов В.С. – иллюстрации; Капуллер В.М. – редактирование. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 20 января 2021

Принята в печать 05 июня 2021

*Kozlov Yu.A.^{1,2,3}, Kovalkov K.A.⁴, Poluyan S.S.⁵, Baradieva P.Zh.¹, Zvonkov D.A.³, Ochirov C.B.¹, Cheremnov V.S.¹, Kapuller V.M.⁶***Povidon-iodine applied for the treatment of chylothorax in children**¹Irkutsk Regional Children's Clinical Hospital, 664009, Irkutsk, Russia²Irkutsk State Medical Academy of Continuous Education, 664049, Irkutsk, Russia³Irkutsk State Medical University, 664003, Irkutsk, Russia⁴Kemerovo Clinical Pediatric Hospital, 650056, Kemerovo, Russia⁵Center for Maternity and Childhood Protection, 660074, Krasnoyarsk, Russia⁶Assuta University Medical Center, Ben-Gurion University, Ashdod, Israel

Introduction. The aim of this study is to demonstrate the experience of non-surgical treatment of congenital and acquired chylothorax in children using povidone-iodine.

Material and methods. The study presents results of treatment of 10 patients with chylothorax who had chemical pleurodesis with povidone-iodine. The study covered a time period from 2016 to 2020. The congenital character of the disease was registered in

2 patients, the acquired one - in 8 patients. The main indication for surgery was ineffective conservative therapy, including the withdrawal of feeding and the administration of preparation Octreotide. The procedure consisted of intrapleural injection of 4% povidone-iodine solution into the pleural cavity with the calculated dose of 1 ml/kg and solution exposure for 4 hours.

Results. The interpleural administration of povidone-iodine was effective in all patients. Complications of chemical pleurodesis were observed in 2 patients and were associated with pulmonary edema on the injection side. Lymph outflow was stopped on average in 4 days. There was one adverse episode which developed because of the lung malformation incompatible with life.

Conclusions. Intrapleural administration of povidone-iodine is an effective treatment of chylothorax in children.

Key words: chylothorax; chemical pleurodesis; povidone-iodine

For citation: Kozlov Yu.A., Kovalkov K.A., Poloyan S.S., Baradieva P.Zh., Zvonkov D.A., Ochirov C.B., Cheremnov V.S., Kapuller V.M. Povidon-iodine applied for the treatment of chylothorax in children. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 230-234. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-230-234> (In Russian)

For correspondence: Yury A. Kozlov, Chief Doctor of the Irkutsk Regional Children's Clinical Hospital; professor at department of pediatric surgery at the Irkutsk State Medical University; professor at department of pediatric surgery at the Irkutsk State Medical Academy of Continuing Education, 664049, Irkutsk, Russia. E-mail: yuriherz@hotmail.com

Information about authors:

Kozlov Yu.A., <https://orcid.org/0000-0003-2313-897X>;
Kovalkov K.A., <https://orcid.org/0000-0001-6126-4198>;
Baradieva P.Zh., <https://orcid.org/0000-0002-5463-6763>;
Ochirov C.B. V.V., <https://orcid.org/0000-0002-6045-1087>;
Kapuller V.M., <https://orcid.org/0000-0003-0076-5778>

Rasputin A.A., <https://orcid.org/0000-0002-5690-790X>
Poloyan S.S., <https://orcid.org/0000-0001-7042-6646>
Zvonkov D.A., <https://orcid.org/0000-0002-7167-2520>
Cheremnov V.S., <https://orcid.org/0000-0001-6135-4054>

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: Kozlov Yu.A. – the concept and design of the study, writing a text; Poloyan S.S., Baradieva P.Zh., Zvonkov D.A. – the collection and processing of the material; Kovalkov K.A. – statistical analysis; Ochirov Ch.B., Cheremnov V.S. – illustrations; Kapuller V.M. – editing. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article

Received: January 20, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

Скопление лимфатической жидкости в плевральной полости чаще всего носит патологический характер и является одной из причин, которые приводят к гидротораксу у детей раннего возраста. Хилоторакс встречается достаточно редко и наблюдается от 1: 6000 до 1:24000 новорождённых [1]. Этому патологическому состоянию часто сопутствуют ранний гестационный возраст ребёнка, низкая масса тела в момент рождения, отёк плода и гипоплазия лёгких [2–5]. Частота летальных исходов, возникающая в результате этого заболевания, достигает 60% [6].

Хилоторакс может носить врождённый или приобретённый характер, представляя собой одну из трудно разрешимых терапевтических задач в перинатальной медицине [7]. Начальная терапия скопления лимфы в плевральной полости предполагает модифицированное питание, включающее среднецепочечные триглицериды, или полную отмену кормления. В случае, если полное парентеральное питание не приводит к исчезновению или снижению темпа выделения лимфы назначается внутривенное введение соматостатина (октреотида) [8]. Успех такого подхода оценивается приблизительно в 80% [9]. У оставшихся 20% пациентов используются различные методы лечения, например, перевязка грудного лимфатического протока, плевроперитонеальное шунтирование, плеврэктомия и химический плевродез [10, 11]. Главный эффект химического плевродеза заключается в химическом раздражении плевральных листков, которое приводит к их адгезии, что в конечном итоге способствует прекращению выделения лимфы. В качестве активных веществ для этой процедуры применяют растительный экстракт *Viscum album*, пицибанил (ОК-432), блеомицин и повидон-йод [11–14]. Однако однозначный ответ об эффективности этих методов лечения по-прежнему отсутствует [15]. Цель настоящего исследования состоит в демонстрации опыта нехирургического лечения врождённого и приобретенного хилоторакса с использованием повидон-йода у детей.

Материал и методы

В научной работе представлены результаты лечения 10 пациентов с хилотораксом, которым выполнен химический плевродез с использованием препарата повидон-йод. Исследование охватывало период с 2016 по 2020 г. Врождённый характер заболевания был зарегистрирован у 2 пациентов, приобретённая природа заболевания отмечалась у 8 пациентов. Врождённый хилоторакс был обусловлен внутриутробной асфиксией, идиопатическим скоплением лимфы в грудной клетке. Приобретённый хилоторакс был вызван предшествующими операциями на органах грудной клетки, выполненными в связи с врождённой диафрагмальной грыжей, атрезией пищевода, врождёнными пороками сердца.

Основными признаками, отличающими хилоторакс от других видов гидроторакса, являлись характерный клеточный состав, в котором лимфоциты составляли более 80%, и концентрация триглицеридов, превышающая 1,24 ммоль/л. Первичное лечение хилоторакса состояло в установке дренажной трубки в плевральную полость и отмену энтерального питания с переходом на полное парентеральное питание. Если на протяжении 5 дней эффект от такой терапии отсутствовал, то назначалось внутривенное введение октреотида в дозе 10 мкг/кг/ч. Если терапия октреотидом была неэффективна на протяжении 10 дней, то есть истечение лимфы сохранялось на уровне 10 мл/кг/сут и более, то выполнялся химический плевродез с использованием повидон-йода.

Техника химического плевродеза. Стандартный 10% раствор повидон-йода («Бетадин» – производитель ЗАО «Фармацевтический завод EGIS») разбавлялся физиологическим раствором NaCl до достижения концентрации, составляющей 4%. Препарат после его разбавления вводился в плевральную полость через установленную ранее дренажную трубку из расчета 1 мл/кг и оставался там на протяжении 4 ч. В период экспозиции повидон-йода производился непрерывный мониторинг показателей газообмена и гемодинамики. В случае появления кардиореспираторных эффектов дренажная трубка открывалась

Результаты химического плевродеза

Results of chemical pleurodesis

Пациент, №	Возраст, дни	Масса тела, г	Причина	Длительность консервативной терапии, дни	Максимальный объём лимфы, мл	Прекращение истечения лимфы, дни	Осложнения
1	26	3010	Врождённая диафрагмальная грыжа	20	80	4	Респираторный дистресс-синдром
2	12	2380	Атрезия пищевода	10	125	4	–
3	17	4200	Асфиксия	15	120	5	–
4	18	2850	Врождённая диафрагмальная грыжа	12	300	2	–
5	23	2600	Врождённая диафрагмальная грыжа	22	180	4	–
6	28	2430	Атрезия пищевода	24	80	4	–
7	10	3740	Врождённая диафрагмальная грыжа	8	90	3	Летальный исход
8	14	2164	Врождённый порок сердца	10	110	6	–
9	15	2875	Врождённый порок сердца	12	80	2	Респираторный дистресс-синдром
10	19	4020	Идиопатический врождённый хилоторакс	18	110	6	–
Средние значения	–	3026,9	–	15,1	127,5	4	–

и препарат удалялся наружу. Пациентам с побочными эффектами введения повидон-йода выполнялись мероприятия, направленные на восстановление нарушенных функций, предполагающие искусственную вентиляцию лёгких и инфузию кардиотонических препаратов. В периоде после выполнения химического плевродеза регистрировался ежедневный объём выделяемой лимфы. Для оценки эффективности проведённого лечения производилась регистрация ранних (побочные эффекты, сроки прекращения выделения лимфы) и отдалённых (выздоровление) последствий лечения.

Результаты

Гендерный состав пациентов с хилотораксом был представлен 6 мальчиками и 4 девочками и не демонстрировал явного полового доминирования. Средний возраст пациентов к моменту лечения хилоторакса с использованием химического плевродеза составил 18,2 дня (диапазон от 10 до 28 дней). Средняя масса тела младенцев – 3026,9 г (диапазон от 2164 до 4200 г). Длительность предшествующего лечения с использованием полного парентерального питания и назначения октреотида составляла в среднем 15,1 день (диапазон от 8 до 24 дней). Темп выделения лимфы до начала химического плевродеза составлял в среднем 127,5 мл (диапазон от 80 до 300 мл). Однократной интраплевральной инъекции повидон-йода было достаточно у 8 пациентов. Двукратное введение препарата требовалось у 2 больных (см. таблицу).

Осложнения химического плевродеза были отмечены у 2 пациентов и связаны с отёком лёгкого на стороне введения, который проявлял себя клинической картиной тотального ателектаза лёгкого и респираторного дистресс-синдрома. Этим больным потребовалась искусственная вентиляция лёгких, которая проводилась на протяжении 24 и 48 ч. Отток лимфы прекратился в среднем на 4-е сутки (диапазон от 2 до 6 дней).

В отдалённом периоде наблюдений (от 1 года до 5 лет) нормальные показатели функции лёгких отмечались у 8 больных. У 2 пациентов сохранялись проблемы, обусловленные лёгочной гипоплазией. Один из пациентов с врождённой диафрагмальной грыжей умер через 10 мес после рождения в результате прогрессирующего ухудшения газообмена и лёгочной гемодинамики на фоне гипоплазии лёгких.

Дискуссия

Врождённое или приобретённое скопление лимфы в грудной клетке или хилоторакс относится к редким заболеваниям, которые приводят к дыхательным нарушениям в результате сдавления лёгкого. Одним из основных способов отведения избытка лимфы наружу является дренирование плевральной полости. Однако такое лечение очень часто сопровождается значительными потерями жидкости, белка, иммуноглобулинов, лимфоцитов, что способствует развитию генерализованной инфекции в результате ослабления иммунитета и (или) проникновения бактерий внутрь организма в местах стояния плеврального дренажа и центрального венозного катетера [16]. Хилоторакс у детей в отличие от взрослых часто является причиной летального исхода. Несмотря на то, что это заболевание известно уже давно, до настоящего времени не существует универсальных принципов лечения, необходимых для достижения оптимального лечебного эффекта.

Существуют консервативные и хирургические методы лечения хилоторакса. Среди них консервативная терапия, включающая назначение диеты, содержащей среднецепочечные триглицериды или отмену питания с назначением полного парентерального питания с установкой плеврального дренажа, получила всеобщее одобрение исследователей этой проблемы. Эффективность такого подхода в сочетании с назначением соматостатина (октреотида) составляет около 80% [17]. P. Rimensberger впервые сообщил о применении соматостатина у ребенка в возрасте 4 мес с хилотораксом, возникшим после кардиохирургической операции [18]. Дальнейшие исследования подтвердили высокую эффективность этого препарата в лечении скопления лимфы в грудной клетке. Два метаанализа литературы [19, 20] продемонстрировали успех лечения октреотидом, составляющий 70 и 53% соответственно. Наилучший эффект наблюдался при назначении препарата в концентрации 10 мкг/кг/мин [21, 22]. Кроме того, соматостатин был использован внутривенно в высокой дозировке (20 мкг/кг/ч и даже больше) без явных побочных реакций [23]. Однако появившиеся позже сообщения о побочных эффектах применения этого препарата, включающих тошноту, вздутие живота, диарею или запор,

гипергликемию, гиперемиию кожи, дисфункцию печени, некротизирующий энтероколит и преходящий гипотиреоз, поставили под сомнение безопасность такого лечения [24, 25].

Кроме того, вызывает беспокойство судьба оставшихся 20% больных с хилотораксом, которые оказались не чувствительны к лечению октреотидом. Главными показателями, которые указывают на неэффективность консервативной терапии хилоторакса у новорождённых, являются длительность потерь лимфы и ее объём, выделяемый наружу через дренажную трубку. Остается неясным, какое значение указанных параметров является критическим? Так К. Cleveland признаёт, что объём утечки лимфы менее 25 мл/кг/сут является критерием успеха терапии [26]. В исследованиях М. Beghetti и V. Büttiker оценивают этот параметр, как 10 мл/кг/ч [17, 27], а F. Scottoni – как 20 мл/кг/ч [1]. В настоящей научной работе мы оценивали эффективность лечения октреотидом на основе определения объёма суточных потерь лимфы, значение которого составляет менее 10 мл/кг/сут.

В качестве хирургических методов часто рассматриваются различные способы, такие как плевроперитонеальное шунтирование, плеврэктомия, хирургический плевродез, лигирование грудного протока [28, 29]. Перевязка грудного лимфатического протока и хирургический плевродез с использованием плеврэктомии наиболее часто используются в качестве надёжных средств, останавливающих патологическое выделение лимфы из плевральной полости. Однако было установлено, что простая перевязка грудного лимфатического протока с использованием торакотомии или торакоскопии не всегда бывает успешной, поскольку анатомия лимфатической системы может быть разнообразной и способствовать тем самым возникновению рецидива из-за наличия разветвлённой сети лимфатических сосудов [30, 31]. Широкая перевязка парааортальной клетчатки, используя в том числе торакоскопию, позволяет увеличить эффективность этой операции до 90% [32]. О торакоскопическом плевродезе с использованием плеврэктомии впервые сообщил LeNuè [7]. Плевроперитонеальное шунтирование лимфы сопровождается нарушением функции шунтирующей системы и стала малопопулярным методом в настоящее время [28, 29].

Плевродез с использованием различных химических субстанций был предложен как альтернатива хирургическому лечению хилоторакса, особенно у детей раннего возраста из-за своей малой агрессивности. С этой целью использовалось несколько препаратов, включая повидон-йод. Использование повидон-йода было впервые представлено в 1991 г. [33] для лечения взрослых со злокачественными опухолями. Механизм действия повидон-йода связан с возникновением асептического воспаления. Этот эффект был обнаружен в эксперименте, который показал высокое содержание лейкоцитов, белка и лактатдегидрогеназы в плевральной жидкости кроликов, подвергнутых введению повидон-йода в плевральную полость [34]. Йод в составе этого агента обладает сильными окислительными и цитотоксическими свойствами, которые вызывают мощный воспалительный ответ в любой структуре, содержащей жидкость [35]. Кроме того, обладая низким рН (рН 2,97), повидон-йод ещё в большей мере способствует возникновению местной воспалительной реакции [36]. Впервые этот препарат стал использоваться у взрослых пациентов со злокачественными заболеваниями плевры и лёгких. Научное исследование, выполненное R. Agarwal, продемонстрировало, что эффективность лечения может достигать 90% [37].

Сообщения об использовании повидон-йода для лечения хилоторакса включают несколько небольших по количеству пациентов серий [1, 6, 7, 11, 15, 38–40]. В этих исследованиях концентрация раствора повидон-йода значительно отличалась, составляя от 2 до 10%. Мы использовали раствор с концентрацией 4%, который вводился в плевральную полость, исходя из расчёта 1 мл/кг. Отсутствие консенсуса в отношении протокола такой процедуры привело к большой вариативности исходов лечения. Результаты имеющихся на сегодняшний день исследований демонстрируют эффективность плевродеза с использованием повидон-йода, составляющую от 64 до 100% [1, 7, 11, 15, 38]. В нашем исследовании мы получили 100% эффект, однако у 2 пациентов его удалось достичь путём двукратного введения препарата в плевральную полость.

Известными на сегодняшний день противопоказаниями для применения химического плевродеза с использованием повидон-йода являются заболевания, сочетающиеся с тромбозом верхней полой вены [1], а также аномалии лёгких, сопровождающиеся лимфангиоэктазией [39, 40]. Именно по этим причинам при идиопатическом хилотораксе рекомендуется выполнение компьютерной томографии лёгких на предмет обнаружения лимфангиоэктазии [40].

Терапия повидон-йодом может сопровождаться побочными эффектами. К наиболее опасным осложнениям относятся респираторный дистресс-синдром, острая и хроническая почечная недостаточность, гемодинамический коллапс и респираторный дистресс-синдром [39]. Ещё одни побочные эффекты связаны с наличием йода в препарате и включают гипертиреоз, гипотиреоз, аллергические реакции и боль [11, 37]. Было установлено, что риск возникновения токсичных эффектов препарата и последующей почечной недостаточности наиболее высок у пациентов с легочными лимфангиоэктазами [15]. В. Resch сообщает о 2 случаях неблагоприятного исхода после применения повидон-йода у новорождённых с врождённым хилотораксом, обусловленным лимфангиоэктазией лёгких. Предполагается, что эта аномалия способствует увеличению абсорбции повидон-йода, что приводит к выраженной интоксикации.

Самое серьёзное осложнение химического плевродеза с применением повидон-йода связано с развитием респираторного дистресс-синдрома, обусловленного отёком лёгкого в ответ на введение химического агента [11]. Мы сообщаем о 2 больных, у которых наблюдался отёк лёгкого.

В нескольких исследованиях сообщалось о возникновении острой почечной недостаточности после введения повидон-йода в плевральную полость, что, очевидно, связано с абсорбцией препарата и его общим токсическим действием на организм [11, 15]. Очевидно, что снижение токсического воздействия повидон-йода, может быть обеспечено уменьшением концентрации вводимого раствора с 4 до 2% – о чём было сообщено в одном из экспериментальных исследований, проведённом на кроликах [34].

Несмотря на эти предостережения, эффект химического плевродеза остаётся достаточно высоким и приближается к 100%. Схожий показатель успеха лечения хилоторакса у новорождённых подтверждён в нашем исследовании.

Таким образом, плевродез с использованием повидон-йода является простым и высокоэффективным вариантом лечения хилоторакса у новорождённых. Предотвращение побочных реакций является критическим моментом для успешного использования химического плевродеза у младенцев.

Заключение

Отсутствие эффективных методов лечения хилоторакса побудило авторов настоящего исследования к поиску новых методов лечения. Нами было установлено, что интраплевральное введение повидон-йода является эффективным методом лечения хилоторакса у детей. Несмотря на то, что это лечение в 20% случаев может сопровождаться осложнениями в виде отёка легкого, по причине обратимости этих негативных эффектов, использование химического плевродеза может быть рекомендовано в качестве второй линии лечения патологического скопления лимфы в плевральной полости. Единственным ограничением этой научной работы является малая выборка пациентов, составляющая 10 больных. Поэтому необходимы многоцентровые исследования, которые окончательно определят место химического плевродеза в лечении хилоторакса у детей.

ЛИТЕРАТУРА (пп. 1–29, 31–40 см. в References)

30. Разумовский А.Ю., Степанов Э.А. *Хилоторакс в детском возрасте*. М.: ГЭОТАР-Медиа; 2011. Текст: электронный. URL: <https://www.studmedlib.ru/book/970406793V0014.html>

REFERENCES

- Scottoni F., Fusaro F., Conforti A., Morini F., Bagolan P. Pleurodesis with povidone-iodine for refractory chylothorax in newborns: Personal experience and literature review. *J Pediatr Surg*. 2015 Oct; 50(10): 1722-5.
- Christofe N.M., Pessotti C.F.X., Paiva L., Jatene I.B. Incidence and Treatment of Chylothorax in Children Undergoing Corrective Surgery for Congenital Heart Diseases. *Braz J Cardiovasc Surg*. 2017 Sep-Oct; 32(5): 390-3.
- Dorsi M., Giuseppi A., Lesage F., Stirnemann J., De Saint Blanquat L., Nicloux M., Assaf Z., Khen Dunlop N., Kermorvant-Duchemin E., Magny J.F., Ville Y., Lapillonne A. Prenatal factors associated with neonatal survival of infants with congenital chylothorax. *J Perinatol*. 2018 Jan; 38(1): 31-4.
- Concheiro-Guisan A., Alonso-Clemente S., Suarez-Albo M., Duran-Fernandez Feijoo C., Fiel-Ozores A., Fernandez-Lorenzo J.R. The Practicality of Feeding Defatted Human Milk in the Treatment of Congenital Chylothorax. 2019 Nov; 14(9): 648-53.
- White M.K., Bhat R., Greenough A. Neonatal Chylothoraces: A 10-Year Experience in a Tertiary Neonatal Referral Centre. *Case Rep Pediatr*. 2019; 2019: 3903598.
- Long W.G., Cai B., Deng J.M., Liu Y., Wang W.J., Luo J. Chemical pleurodesis and somatostatin in treating spontaneous chylothorax in pediatric patients: a retrospective analysis and review of the literature. *Transl Pediatr*. 2020 Aug; 9(4): 551-60.
- Le Nué R., Molinaro F., Gomes-Ferreira C., Scheib-Brolly C., Escande B., Kühn P., Lacreuse I., Favre R., Becmeur F. Surgical management of congenital chylothorax in children. *Eur J Pediatr Surg*. 2010 Sep; 20(5): 307-11.
- Moreira-Pinto J., Rocha P., Osório A., Bonet B., Carvalho F., Duarte C., Oliveira L. Octreotide in the treatment of neonatal postoperative chylothorax: report of three cases and literature review. *Pediatr Surg Int*. 2011 Aug; 27(8): 805-9.
- Soto-Martínez M., Massie J. Chylothorax: diagnosis and management in children. *Paediatr Respir Rev*. 2009 Dec; 10(4): 199-207.
- Azizkhan R.G., Canfield J., Alford B.A., Rodgers B.M. Pleuroperitoneal shunts in the management of neonatal chylothorax. *J Pediatr Surg*. 1983 Dec; 18(6): 842-50.
- Brissaud O., Desfrere L., Mohsen R., Fayon M., Demarquez J.L. Congenital idiopathic chylothorax in neonates: chemical pleurodesis with povidone-iodine (Betadine). *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2003 Nov; 88(6): F531-3.
- De Beer H., Mol M., Janssen J. Chylothorax. *Neth. J. Med*. 2000; 56: 25-31.
- Kim J.E., Lee C., Park K.I., Park M.S., Namgung R., Park I.K. Successful pleurodesis with OK-432 in preterm infants with persistent pleural effusion. *Korean J. Pediatr*. 2012; 55: 177-80.
- Cho H., Na K., Kim D., Choi Y., Ma J., Jeong I. Chemical pleurodesis using a *Viscum album* extract in infants with congenital chylothorax. *Eur. J. Pediatr*. 2014; 173: 823-6.
- Mitanchez D., Walter-Nicolet E., Salomon R., Bavoux F., Hubert P. Congenital chylothorax: what is the best strategy? *Arch. Dis. Child. Fetal Neonatal Ed*. 2006; 91: F153-4.
- Roehr C.C., Jung A., Proquitté H., Blankenstein O., Hammer H., Lakhoo K., Wauer R.R. Somatostatin or octreotide as treatment options for chylothorax in young children: a systematic review. *Intensive Care Med*. 2006 May; 32(5): 650-7.
- Büttiker V., Fanconi S., Burger R. Chylothorax in children: guidelines for diagnosis and management. *Chest*. 1999 Sep; 116(3): 682-7.
- Rimensberger P.C., Müller-Schenker B., Kalangos A., Beghetti M. Treatment of a persistent postoperative chylothorax with somatostatin. *Ann Thorac Surg*. 1998; 66: 253-4.
- Das A., Shah P.S. Octreotide for the treatment of chylothorax in neonates. *Cochrane Database Syst Rev*. 2010; 08: CD006388.
- Bellini C., Cabano R., De Angelis L.C., et al. Octreotide for congenital and acquired chylothorax in newborns: A systematic review. *J Paediatr Child Health*. 2018; 54: 840-7.
- Azam M.N., Majhi S.K., Mishra B.N., et al. Bilateral spontaneous chylothorax in a newborn and response to octreotide therapy. *Int J Contemp Pediatr*. 2017; 4: 658-60.
- Church J.T., Antunez A.G., Dean A., et al. Evidence-based management of chylothorax in infants. *J Pediatr Surg*. 2017; 52: 907-12.
- Çakır U., Kahvecioğlu D., Yıldız D., et al. Report of a case of neonatal chylothorax that responded to long-term octreotide treatment, and review of the literature. *Turk J Pediatr*. 2015; 57: 195-7.
- Saito M., Kamoda T., Kajikawa D., et al. High Dose Octreotide for the Treatment of Chylothorax in Three Neonates. *J Neonatal Biol*. 2016; 5: 218.
- Dehghan K. Idiopathic Chylothorax in a Term Neonate and Successful Treatment with Octreotide and Medium Chain Triglyceride – Enriched Formula: A Case Report. *Int J Pediatr*. 2019; 7: 9535-40.
- Cleveland K., Zook D., Harvey K., Woods R.K. Massive chylothorax in small babies. *J Pediatr Surg*. 2009 Mar; 44(3): 546-50.
- Beghetti M., La Scala G., Belli D., Bugmann P., Kalangos A., Le Coultre C. Etiology and management of pediatric chylothorax. *J Pediatr*. 2000 May; 136(5): 653-8.
- Wolff A.B., Silen M.L., Kokoska E.R., Rodgers B.M. Treatment of refractory chylothorax with externalized pleuroperitoneal shunts in children. *Ann Thorac Surg*. 1999 Sep; 68(3): 1053-7.
- Mattei P., Ed. *Fundamentals of Pediatric Surgery*. New York: Springer; 2011, 311.
- Razumovsky A.Yu., Stepanov E.A. *Chylothorax in childhood*. М.: ГЭОТАР-Медиа; 2011. Text: electronic. URL: <https://www.studmedlib.ru/book/970406793V0014.html> (in Russian)
- Nath D.S., Savla J., Khemani R.G., Nussbaum D.P., Greene C.L., Wells W.J. Thoracic duct ligation for persistent chylothorax after pediatric cardiothoracic surgery. *Ann Thorac Surg*. 2009; 88(1): 246-51.
- Pego-Fernandes P.M., Nascimbem M.B., Ranzani O.T., Shimoda M.S., Monteiro R., Jatene F.B. Video-assisted thoracoscopy as an option in the surgical treatment of chylothorax after cardiac surgery in children. *J Bras Pneumol*. 2011 Feb; 37(1): 28-35.
- Echavarría A., Pinzón V., Barés J.P., Fernández E. Intracavitary treatment of malignant pleural effusion with iodine-povidone. *Rev Med Panama*. 1991 Jan; 16(1): 69-74.
- Guo Y., Tang K., Bilaceroglu S., Kalomenidis I., Salleng K.J., Lane K.B., Light R.W. Iodopovidon is as effective as doxycycline in producing pleurodesis in rabbits. *Respirology*. 2010 Jan; 15(1): 119-1.
- Cohan R.H., Saeed M., Schwab S.J., Perlmutter L.M., Dunnick N.R. Povidone-iodine sclerosis of pelvic lymphocoles: a prospective study. *Urol-Radiol*. 1988; 10(4): 203-6.
- Olivares-Torres C.A., Laniado-Laborín R., Chávez-García C., León-Gastelum C., Reyes-Escamilla A., Light R.W. Iodopovidone pleurodesis for recurrent pleural effusions. *Chest*. 2002; 122(2): 581-3.
- Agarwal R., Khan A., Aggarwal A.N., Gupta D. Efficacy & safety of iodopovidone pleurodesis: a systematic review & meta-analysis. *Indian J Med Res*. 2012 Mar; 135: 297-304.
- Murki S., Faheemuddin M., Gaddam P. Congenital chylothorax—successful management with chemical pleurodesis. *Indian J Pediatr*. 2010 Mar; 77(3): 332-4.
- Resch B., Freidl T., Reiterer F. Povidone-iodine pleurodesis for congenital chylothorax of the newborn. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2016; 101: F87-8.
- Borczyk K., Kamil A., Hagerty K., Deer M., Tomich P., Anderson Berry A.L. Successful management of extremely high-output refractory congenital chylothorax with chemical pleurodesis using 4% povidone-iodine and propranolol: a case report. *Clin Case Rep*. 2018 Feb 27; 6(4): 702-8.

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2021

Разумовский А.Ю.¹, Митупов З.Б.¹, Рачков В.Е.¹, Степаненко Н.С.¹, Адлер А.В.², Куликова Н.В.², Стрижова Д.Н.¹

Сравнительный анализ результатов лечения детей со стенозами верхних дыхательных путей

¹ФГАОУ ВО «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 117997, г. Москва, Россия;²ГБУЗ города Москвы «Детская городская клиническая больница имени Н.Ф. Филатова Департамента здравоохранения города Москвы», 103001, г. Москва, Россия

Введение. Определение «стеноз верхних дыхательных путей (ВДП)» включает большое количество нозологий. Наиболее распространённые заболевания – рубцовые стенозы, в частности постинтубационные, а также двусторонние параличи гортани. В настоящее время актуальной проблемой является выбор хирургического метода лечения таких пациентов.

Цель исследования – сравнить результаты лечения детей со стенозами ВДП.

Материал и методы. В статье проанализированы результаты лечения 110 пациентов, которым выполнено реконструктивное оперативное вмешательство в период с 2010 по 2019 г. Пациенты разделены на 2 группы в зависимости от нозологии: стенозы ВДП ($n = 71$) и двусторонние параличи гортани ($n = 39$). В каждой группе выполнялись четыре вида операций: пластика рёберным хрящом, пластика с установкой Т-образной трубки (ТТ), модифицированный вариант пластики с установкой ТТ, пластика с установкой стента. Выбор метода лечения определялся во многом тенденцией использования того или иного вида операции в нашем отделении, а также нозологией, степенью тяжести заболевания, возрастом пациента. Оценивались сроки деканюляции, время операции, ранние и поздние послеоперационные осложнения, сроки рецидива.

Результаты. 66% деканюлированных пациентов в I группе и 69% в группе II, в I группе статистически достоверным будет сравнение метода пластики рёберным хрящом и пластики гортани стентом ($p > 0,005$), а также метод пластики с установкой ТТ и нашего модифицированного метода ($p > 0,005$). Используя критерий Манна–Уитни и Log Rank, нами установлено, что достоверных различий в I группе по времени операции, срокам рецидива и степени стеноза нет ($p > 0,005$). Однако в I-й подгруппе сроки деканюляции после пластики гортани с установкой рёберного хряща длительнее, чем при пластике с установкой стента ($p < 0,005$). Во II группе проводилось сравнение между тремя методами лечения, исключая метод пластики гортани с установкой ТТ. Таким образом, время операции при пластике рёберным хрящом выше по сравнению с остальными двумя методами ($p < 0,005$). Также отсутствует достоверная значимость при сроках деканюляции и сроках рецидива при всех трех методах ($p > 0,005$).

Заключение. Полученные результаты демонстрируют эффективность длительного стентирования с размещением ТТ у детей преимущественно с рубцовыми стенозами и у детей старшего возраста. В ходе исследования получены данные об эффективности применения ларингопластики с использованием рёберного хряща у детей с двусторонним параличом гортани.

Ключевые слова: пластика гортани; Т-образная трубка; стент; двусторонний паралич; дети; стеноз верхних дыхательных путей.

Для цитирования: Разумовский А.Ю., Митупов З.Б., Рачков В.Е., Степаненко Н.С., Адлер А.В., Куликова Н.В., Стрижова Д.Н. Сравнительный анализ результатов лечения детей со стенозами верхних дыхательных путей. *Детская хирургия.* 2021; 25(4): 235-243. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-235-243>

Для корреспонденции: Стрижова Дарья Николаевна, аспирант кафедры детской хирургии ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова, 117997, г. Москва. E-mail: strijhova_d@mail.ru

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Разумовский А.Ю. – концепция и дизайн исследования, редактирование; Стрижова Д.Н. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, статистический анализ, написание текста; Митупов З.Б., Рачков В.Е., Степаненко Н.С., Адлер А.В., Куликова Н.В. – редактирование. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 20 марта 2021
Принята в печать 05 июня 2021

Razumovsky A. Yu.¹, Mitupov Z. B.¹, Rachkov V. E.¹, Stepanenko N. S.¹, Adler A. V.², Kulikova N. V.², Strizhova D. N.¹

A comparative analysis of outcomes after surgical reconstruction of stenoses in the upper respiratory tract in children

¹Pirogov Russian National Research Medical University, Moscow, 117997, Russia;²Filatov City Children's Hospital, Moscow, 103001, Russia

Introduction. Definition "upper respiratory tract stenosis" (URTS) includes a large number of nosologies. The most common are cicatricial stenoses, in particular, post-intubation ones as well as bilateral paralysis of the larynx. An important issue for nowadays is choosing the curative modality for such patients.

Purpose. To compare outcomes after treating children with URTS.

Material and methods. The authors have assessed results of treatment of 110 patients who had reconstructive surgery in 2010-2019. Patients were divided into two groups depending on the nosology: stenosis of the upper respiratory tract ($n = 71$) and bilateral paralysis of the larynx ($n=39$). In each group, four types of surgeries were performed: costal cartilage plasty, plasty with T-tube (TT), a modified version of plasty with TT, plasty with a stent. The choice of treatment technique was determined mostly by the tendency to make this or that type of surgery in authors' departments, as well as by the nosology, severity of the disease and patient's age. Decannulation terms, surgical time, early and late postoperative complications as well as relapse-free period were assessed.

Results. 66% patients were decannulated in Group 1; in Group 2 - 69%. Group 1 a statistically reliable comparison was possible between the following techniques: costal cartilage plasty and laryngeal stent plasty ($p > 0.005$) as well as plasty with TT implantation and the proposed modified technique ($p > 0.005$). While using Mann-Whitney test and Log Rank, the authors found out that in Group 1 there were no significant difference in surgical time, relapse-free period and stenosis degree ($p > 0.005$). However, decannulation terms after plastic surgery of the larynx with costal cartilage implantation are longer than after plastic surgery with stent implantation ($p < 0.005$). In Group 2, the authors compared three abovementioned curative modalities, excluding laryngeal plasty with TT implantation. Thus, surgical time for costal cartilage plasty is longer, if to compare to other two techniques ($p < 0.005$). There is also no significant difference in decannulation terms and relapse-free periods between all three techniques ($p > 0.005$).

Conclusion. The results obtained have demonstrated the effectiveness of long-term stenting with TT placement in children, mainly with cicatricial stenoses, and in older children. The trial also revealed that laryngoplasty with costal cartilage in children with bilateral laryngeal paralysis is an effectiveness choice too.

Key words: Laryngoplasty; T-tube, stent; bilateral paralysis; children; upper airway stenosis.

For citation: Razumovsky A.Yu., Mitupov Z.B., Rachkov V.E., Stepanenko N.S., Adler A.V., Kulikova N.V., Strizhova D.N. A comparative analysis of outcomes after surgical reconstruction of stenoses in the upper respiratory tract in children. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 235-243. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-235-243> (In Russian)

For correspondence: Darya N. Strizhova, MD, post-graduate student at chair of pediatric surgery in Pirogov Russian National Research Medical University, Moscow, 117997, Russia. E-mail: strizhova_d@mail.ru

Information about authors:

Razumovsky A.Yu., <https://orcid.org/0000-0002-9497-4070>

Stepanenko N.S., <https://orcid.org/0000-0002-2827-1764>

Kulikova N.V., <https://orcid.org/0000-0003-0834-2630>

Mitupov Z.B., <https://orcid.org/0000-0002-0016-6444>

Adler A.V., <https://orcid.org/0000-0001-6084-8263>

Rachkov V.E., <https://orcid.org/0000-0002-1304-0592>

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: Razumovsky A.Yu. – the concept and design of the study, editing; Strizhova D.N. – the concept and design of the study, the collection and processing of the material, statistical analysis, writing a text; Mitupov Z.B., Rachkov V.E., Stepanenko N.S., Adler A.V., Kulikova N.V. – editing. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: March 20, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

В практике детских хирургов и оториноларингологов проблема стеноза верхних дыхательных путей (ВДП) крайне актуальна [1, 2]. Определение «стеноз ВДП» включает большое количество нозологий, которые все чаще встречаются при обследовании дыхательных путей ребёнка [2, 3]. Наиболее распространёнными заболеваниями являются рубцовые стенозы, в частности постинтубационные [4], а также двусторонние параличи гортани [5–7]. Двусторонний паралич гортани представляет особый интерес для врача-хирурга ввиду стойких дыхательных расстройств, которые возможно исправить лишь хирургическим путем [7, 8].

Подход к лечению у таких больных всегда индивидуален [9]. В связи с активным развитием новых эндоскопических и открытых методов лечения, чётких показаний и универсального алгоритма хирургического лечения на сегодняшний день нет [9–11]. Эндопросветное лечение может быть рекомендовано на начальных этапах лечения, либо выступать в роли комбинированной терапии [9, 12]. Однако при стенозах III–IV степени, параличах гортани, значительных образованиях дыхательного просвета рекомендуется использовать только открытое реконструктивное вмешательство [13–16].

Одна из основных проблем лечения такой группы пациентов – это определение оптимального возраста для проведения операции. Так, многие хирурги рекомендуют выполнять лечение в более старшем возрасте (3–5 лет) ввиду меньшего количества осложнений и рецидивов [17]. Таким образом, пациенты вынуждены быть носителями трахеостомы в течение долгого времени, что вызывает трудности в связи с особенностями ухода за ней, проблемы в социализации ребёнка, а также в развитии речевого аппарата [17]. Во время выхаживания пациентов раннего возраста в послеоперационном периоде возникают сложности из-за высокого риска экстубации и воспалительных изменений [18–21].

Немаловажно, чтобы у пациентов с тяжёлой степенью стеноза была возможность применения повторного лечения в случае рецидива, в таком случае применяется пластика рёберным хрящом и пластика с длительным стентированием просвета при помощи T-образной трубки (ТТ) [19–28].

Цель исследования – улучшить результаты лечения детей со стенозами ВДП.

Материал и методы

В период с января 2010 по декабрь 2019 г. в Детской городской клинической больнице им. Н.Ф. Филатова г. Москвы наблюдались 110 пациентов со стенозом ВДП. Критерии включения больных в исследование: реконструктивное лечение, проводимое впервые ($n = 110$). Критерии исключения: пациенты, оперированные по поводу объёмных образований ВДП, пациенты, которым проводилось эндопросветное лечение CO₂-лазером, а также пациенты, которым проводился иной вид реконструктивной операции. При ретроспективном анализе медицинской документации выявлено, что детям со стенозом ВДП с 1993 г. проводилась пластика рёберным хрящом. С 2010 г. для лечения сужений ВДП стали применять пластику с установкой ТТ. Кроме того, с 2012 г. методика с использованием ТТ была модифицирована в отделении торакальной хирургии ДГКБ им. Н.Ф. Филатова и успешно применяется сейчас. В 2016 г. в отделении начали использовать еще один метод лечения – пластика ВДП стентом с сохранением трахеостомы. Таким образом, у детей в отделении торакальной хирургии выбор метода лечения определялся, учитывая современные тенденции в предпочтении той или иной операции при стенозах ВДП. В качестве источников информации использована первичная медицинская документация: медицинская карта стационарного больного, журнал записи протоколов оперативных вмешательств отделения торакальной хирургии. Пациенты ($n = 110$) были поделены на 2 группы в зависимости от нозологии.

Таблица 1 / Table 1

Результаты распределения показателей пациентов I и II групп с использованием одновыборочного критерия Колмогорова–Смирнова**Parameter distribution in patients of Groups I and II with one-sample Kolmogorov–Smirnov test**

Показатель	<i>p</i> (одновыборочный критерий Колмогорова–Смирнова)
Возраст, мес (является нормальным со средним отклонением 43 и стандартным – 48,059)	< 0,005
Время операции, мин (является нормальным со средним отклонением 31 и стандартным – 8,781)	< 0,005
Сроки деканюляции, мес (является нормальным со средним отклонением 9 и стандартным – 4,945)	< 0,005
Сроки рецидива, мес (является нормальным со средним отклонением 8 и стандартным – 6,518)	< 0,005
Деканюляция после повторной операции, мес (является нормальным со средним отклонением 9 и стандартным – 3,659)	< 0,005
Рецидив после повторной операции, мес (является нормальным со средним отклонением 16 и стандартным – 9,292)	< 0,005

I группу составили дети с врождёнными и приобретёнными стенозами ВДП ($n = 71$), II – пациенты с двусторонним параличом гортани ($n = 39$). Младшему пациенту в исследовании было 4 мес, старшему – 16 лет. В каждой группе проведены 4 вида реконструкции ВДП. Таким образом, сравнительный анализ был проведён внутри каждой группы с целью определения эффективности каждого метода лечения относительно нозологии. Общее количество пациентов, которые уже являлись носителями трахеостомических канюль до реконструктивного лечения в нашем отделении, составило 97 (89%) человек.

Характеристика пациентов I группы (стенозы). В процессе анализа данных выявлено, что операции пластики гортани рёберным хрящом и пластику с установкой стента проводили детям раннего возраста (медиана (*Me*) возраста составила 20 мес), а пластику с применением ТТ и метод пластики в нашей модификации – преимущественно у детей старшей группы (*Me* возраста составила 115 мес). Таким образом, решено разделить пациентов I группы на 2 подгруппы в зависимости от возраста и проводить статистический анализ в каждой из подгрупп. Среди нозологии в I группе преобладали дети с постинтубационным стенозом ВДП ($n = 51$; 71%). В I группе пластика гортани с установкой рёберного хряща выполнена 37 (52%) детям; пластику с установкой ТТ – 10 (14%); пластику модифицированным способом – 19 (27%); пластику с установкой стента – 5 (8%).

Характеристика пациентов II группы (двусторонний паралич гортани). Во II группе преобладали дети с врождённым параличом гортани ($n = 19$; 15%). Среди пациентов II группы ($n = 39$) пластика рёберным хрящом выполнена 21 (54%) пациенту, пластика с установкой ТТ – 2 (5%), модифицированный метод применён у 13 (33%) детей, пластика гортани с установкой стента – 3 (8%).

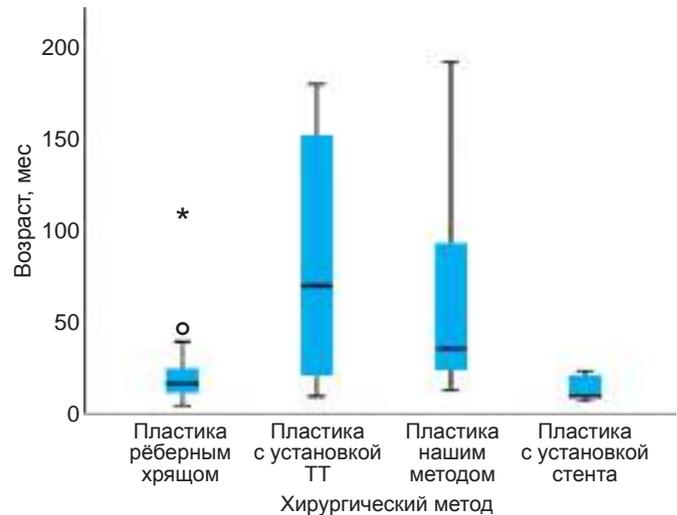


Рис. 1. Диаграмма распределения возраста пациентов I группы в зависимости от хирургического метода с применением критерия Краскала–Уоллиса.

Fig. 1. Bar chart of patients' age distribution in Group I depending on the chosen surgical technique using Kruskal–Wallis test.

Статистический анализ. В результате статистического анализа с использованием одновыборочного критерия Колмогорова–Смирнова была проведена проверка на нормальность распределений возраста, времени операции и т. д. (табл. 1). Был сделан вывод, что эти распределения отличны от нормальных ($p < 0,005$ для всех распределений). Таким образом, для оценки эффективности хирургических методов лечения решено провести попарное сравнение внутри каждой группы.

Статистический анализ проведён с использованием Microsoft Excel for mac 2011, статистического пакета IBM SPSS v.20. Данные представляли в виде средних значений и стандартных отклонений для непрерывных нормально распределённых переменных, в виде медианы, минимума и максимума непрерывных данных, не распределённых нормально, а также в виде абсолютных значений и процентов для категориальных данных. Анализ нормальности проводился с помощью теста Колмогорова–Смирнова и Шапиро–Уилка. Для сравнения групп по времени рецидива заболевания использован метода Каплана–Мейера. Для сравнения групп по порядковым признакам применялся критерий Краскала–Уоллиса для независимых переменных с последующим апостериорным анализом. Различия между группами считались статистически значимыми при значении $p < 0,05$.

Результаты

Результаты в I группе исследования (стенозы).

В I группе ($n = 71$) успешно деканюлировано 47 (66%) пациентов после первичной реконструкции. Осложнения в раннем послеоперационном периоде в I группе представлены дисфагией у 8% пациентов, воспалением послеоперационной раны – у 4%, обструкцией ТТ – у 3%, а также 1 случай интраоперационной перфорации трахеи. Среди поздних осложнений преобладали миграция стента – 7% и самопроизвольная деканюляция ТТ – 3%. Рецидив заболевания в I группе зафиксирован у 24 (34%) пациентов.

Учитывая факт ненормального распределения показателей независимых выборок в I и II группах, нами выполнен анализ с использованием непараметрической статистики (рис. 1). В I группе мы провели попарное

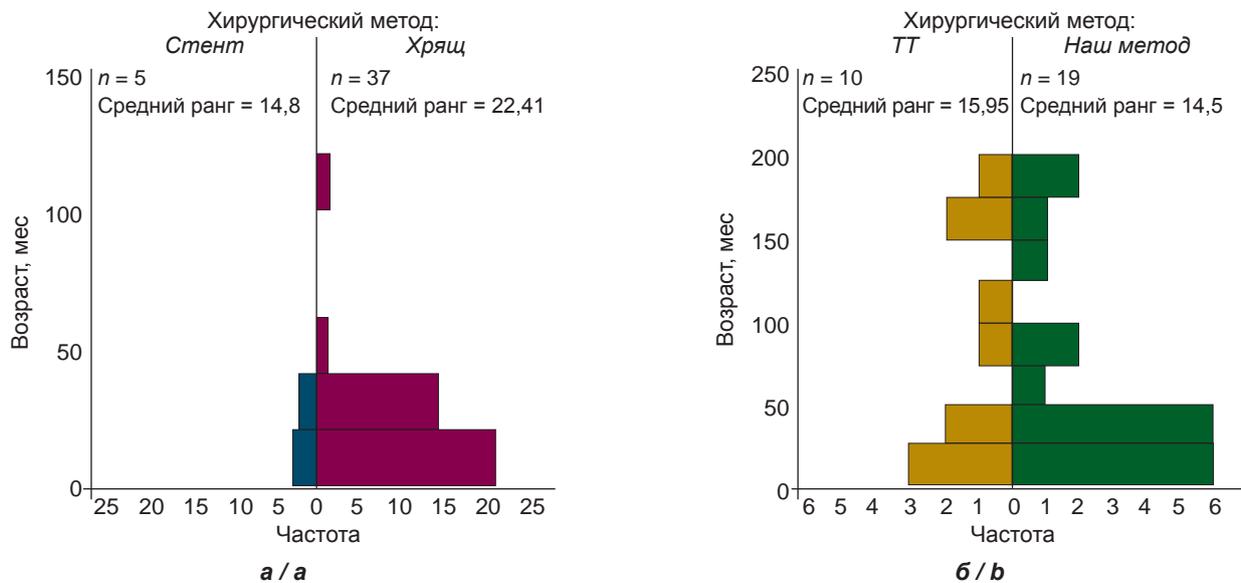


Рис. 2. Распределение возраста (мес) в I группе в подгруппе 1 (хрящ/стент – а) и в подгруппе 2 (ТТ/наш метод – б) с применением U критерия Манна–Уитни для независимых выборок.

Fig. 2. Distribution of age (months) in Group I in subgroup 1 (cartilage/stent – a) and in subgroup 2 (TT/our method – b) using Mann–Whitney test.

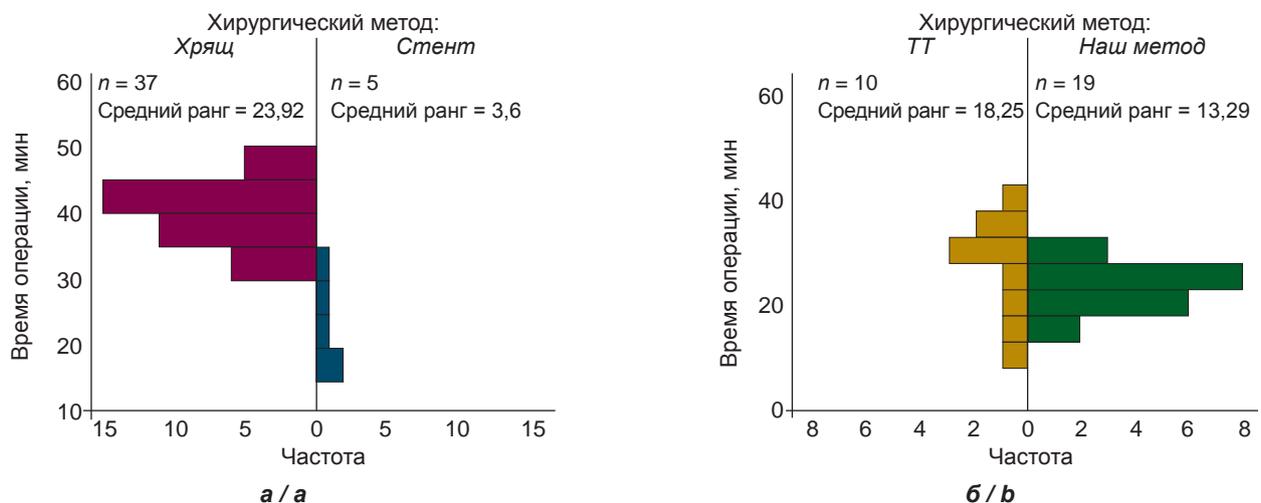


Рис. 3. Распределение времени операции (мин) в I группе в подгруппе 1 (хрящ/стент – а) и в подгруппе 2 (ТТ/наш метод – б) U критерия Манна–Уитни для независимых выборок.

Fig. 3. Distribution of surgical time (min) in Group I in subgroup 1 (cartilage/stent – a) and in subgroup 2 (TT/our method – b) using Mann–Whitney test.

сравнение каждого метода, применив критерий Краскала–Уоллиса. Таким образом мы выяснили, что внутри группы статистически достоверным будет сравнение метода пластики рёберным хрящом и пластики гортани стентом между собой ($p > 0,005$), а также метода пластики с установкой ТТ и модифицированным методом ($p > 0,005$) (рис. 2).

Время операции в 1-й подгруппе (хрящ/стент) при пластике рёберным хрящом выше, чем при пластике с установкой стента (критерий Манна–Уитни равен 3,0, $p < 0,001$). Во 2-й подгруппе (ТТ/наш метод) отсутствия статистического различия показателей времени операции нет (критерий Манна–Уитни 62,5, $p > 0,005$). Таким образом, время операции при пластике с использованием ТТ и время операции при использовании нашего метода сравнительно одинаковое (рис. 3).

В I группе ($n = 71$) после первичной пластики деканюлировано 47 (66%) пациентов. В 1-й подгруппе (хрящ/стент) отсутствует статистическое различие в силу малого количества выборки (критерий Манна–Уитни 4,0, $p > 0,005$). Однако наблюдается тенденция, что при пластике с установкой стента срок деканюляции короче, чем при пластике рёберным хрящом. Сроки деканюляции при пластике с использованием ТТ и при использовании нашего метода сравнительно одинаковые (критерий Манна–Уитни 80,0, $p > 0,005$) (рис. 4).

В I группе среди 71 пациента у 24 (34%) выявлен рецидив заболевания. В 1-й подгруппе (хрящ/стент) отсутствует статистическое различие времени развития рецидива заболевания (критерий Манна–Уитни 17,5; $p > 0,005$). Во 2-й подгруппе также отсутствуют статисти-

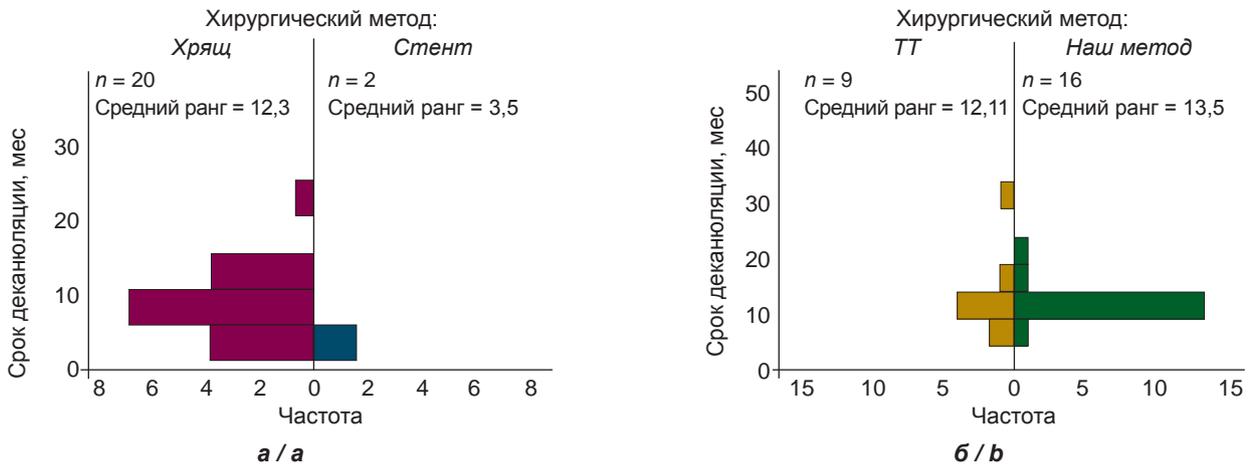


Рис. 4. Распределение срока деканюляции (мес) в I группе в подгруппе 1 (хрящ/стент – а) и в подгруппе 2 (ТТ/наш метод – б) с применением U критерия Манна–Уитни для независимых выборок.

Fig. 4. Distribution of decannulation terms (months) in Group I in subgroup 1 (cartilage/stent – a) and in subgroup 2 (TT/our method – b) using Mann–Whitney test.

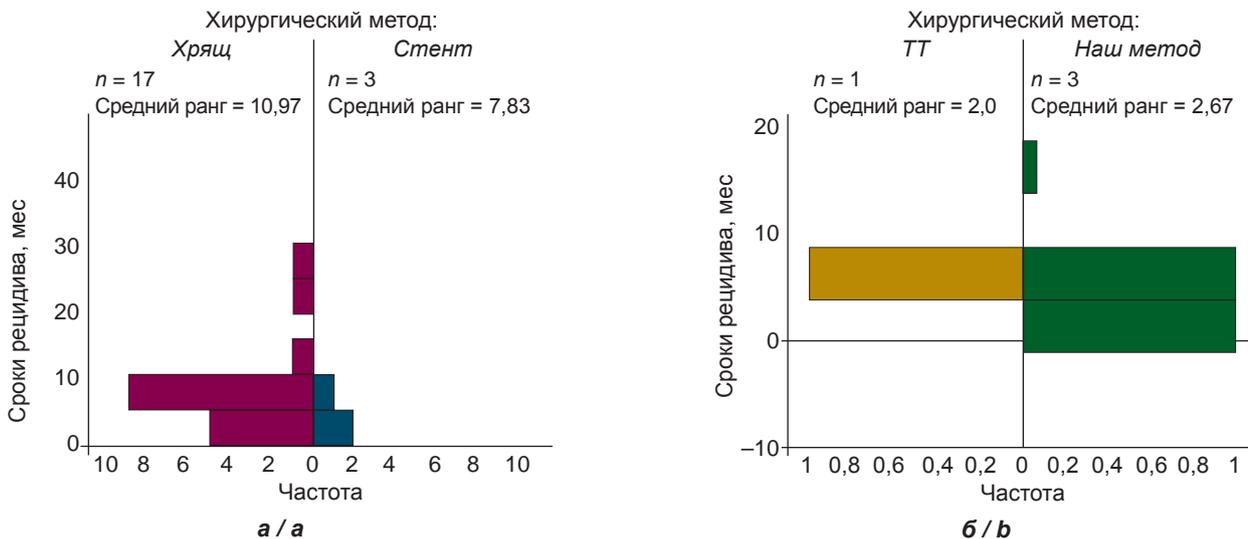


Рис. 5. Распределение срока рецидива заболевания (мес) в I группе в подгруппе 1 (хрящ/стент – а) и в подгруппе 2 (ТТ/наш метод – б) с применением U критерия Манна–Уитни для независимых выборок.

Fig. 5. Distribution of relapse-free period (months) in Group I in subgroup 1 (cartilage/stent – a) and in subgroup 2 (TT/our method – b) using Mann–Whitney test.

стически достоверные различия срока развития стеноза (критерий Манна–Уитни 2,0; $p > 0,005$) (рис. 5).

Для сравнительной оценки эффективности среди основных хирургических методов в 1-й подгруппе (хрящ/стент – а) и в подгруппе 2 (ТТ/наш метод – б) мы построили кривую Kaplan–Meier, переменными которой стали период наблюдения в месяцах и доля деканюлированных пациентов (рис. 6, а, б). Таким образом, сроки деканюляции после пластики гортани с установкой реберного хряща длительнее, чем при пластике с установкой стента (критерий Log Rank (Mantel-Cox) равен 0,009; $p < 0,005$). Во 2-й подгруппе сроки деканюляции при пластике с использованием ТТ и при использовании нашего метода сравнительно одинаковые (критерий Log Rank (Mantel-Cox) равен 0,515; $p > 0,005$).

На рис. 7 (а, б) изображены кривые Kaplan–Meier, переменными которой стали период наблюдения в месяцах и степень свободы от стеноза. В 1-й подгруппе (хрящ/стент) сроки рецидива после пластики гортани с установ-

кой реберного хряща и при пластике с установкой стента сравнительно одинаковые (критерий Log Rank (Mantel-Cox) равен 0,485; $p > 0,005$). Во 2-й подгруппе сроки развития рецидива заболевания при пластике с использованием ТТ и при использовании нашего метода сравнительно одинаковые (критерий Log Rank (Mantel-Cox) равен 0,757; $p > 0,005$).

Результаты лечения во II группе (двусторонние паралитиче гортани). Во II группе (n = 39) деканюлировано 27 (69%) детей после первичного реконструктивного лечения; ранние послеоперационные осложнения во II группе представлены воспалением раны – 10%, дисфагией – 13% и обструкцией Т-трубки – 5%.

Среди поздних осложнений преобладала обструкция ТТ – 5%. Рецидив заболевания наблюдался у 12 (31%) пациентов. В результате статистического анализа с использованием одновыборочного критерия Колмогорова–Смирнова была проведена проверка на нормальность распределений возраста, времени операции, сроков деканюляции и

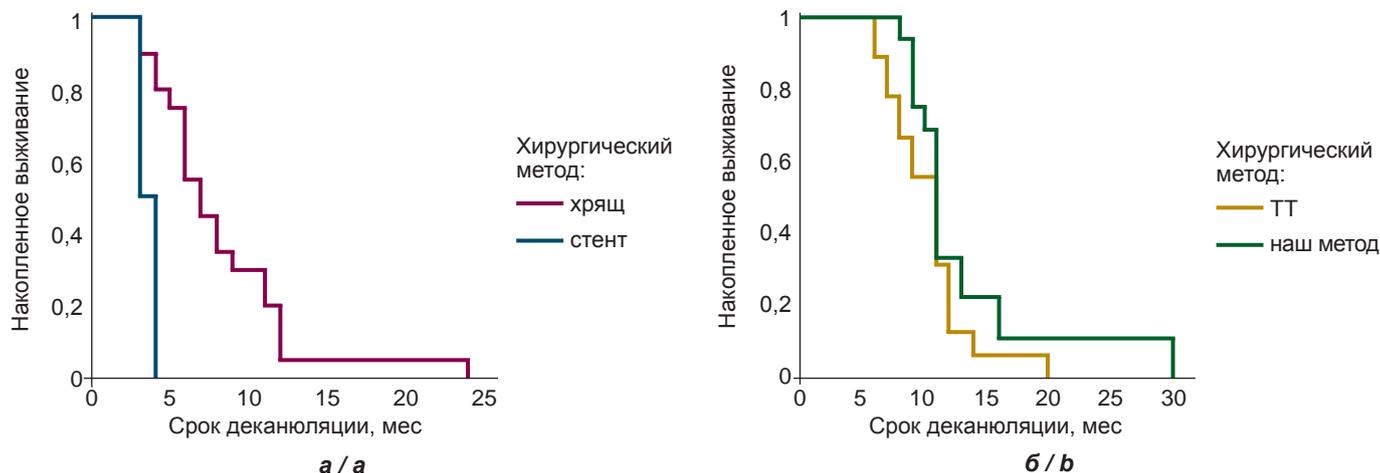


Рис. 6. Кривая Kaplan–Meier, отражающая общую долю деканюлированных пациентов в I группе в подгруппе 1 (хрящ/стент – а) и в подгруппе 2 (ТТ/наш метод – б).

Fig. 6. The Kaplan–Meier curve reflecting the total proportion of decannulated patients in Group I in subgroup 1 (cartilage/stent – a) and in subgroup 2 (TT/our method – b).

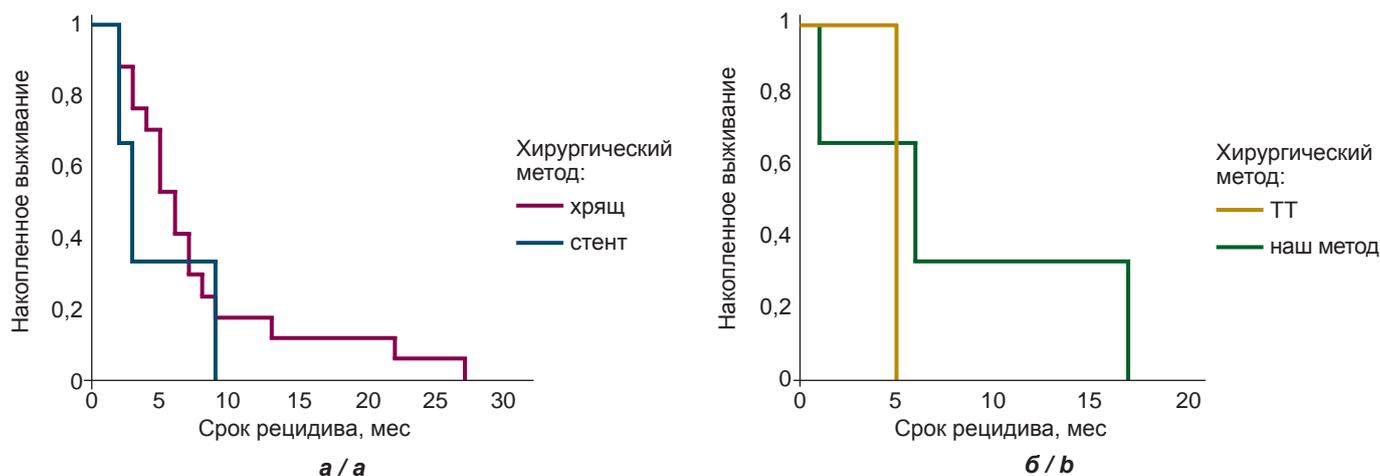


Рис. 7. Кривая Kaplan–Meier, отражающая общую свободу от рецидива заболевания пациентов в I группе в подгруппе 1 (хрящ/стент – а) и в подгруппе 2 (ТТ/наш метод – б).

Fig. 7. The Kaplan–Meier curve reflecting the general relapse-free state in patients from Group I in subgroup 1 (cartilage/stent – a) and in subgroup 2 (TT/our method – b).

сроков рецидива во II группе (табл. 2). Было определено, что распределения значений пациентов, которым была проведена пластика гортани с установкой ТТ отличны от нормальных ($p < 0,005$). Тогда как распределение значений пациентов, в лечении которых использованы остальные три метода, получилось нормальным ($p > 0,005$).

Таблица 2 / Table 2

Результаты распределения показателей пациентов II группы с использованием одновыборочного критерия Колмогорова–Смирнова

Results of parameter distribution in patients from Group II using one-sample Kolmogorov–Smirnov test

Показатели пациентов II группы	p (критерий Краскала–Уоллиса для независимых выборок)
Время операции, мин	$< 0,005$
Сроки деканюляции, мес	$> 0,005$
Сроки рецидива, мес	$> 0,005$
Возраст, мес	$> 0,005$

Учитывая факт ненормального распределения показателей независимых выборок во II группе, нами выполнен анализ с использованием непараметрической статистики (рис. 8, табл. 3).

Мы пришли к выводу, что внутри группы статистически достоверным будет сравнение трех методов между собой: пластика реберным хрящом, пластика гортани нашим методом, пластика гортани с установкой стента ($p > 0,005$). Метод пластики гортани с установкой ТТ невозможно сравнить с остальными методами в группе по причине малого количества выборки ($n = 2$) ($p < 0,005$). Однако всех пациентов после пластики гортани с установкой ТТ удалось деканюлировать. По данным, представленным на диаграммах (рис. 9), можно утверждать, что время операции при пластике реберным хрящом продолжительнее по сравнению с остальными двумя методами ($p < 0,005$). Время пластики гортани по нашей методике и пластики с установкой стента сравнительно одинаковое ($p > 0,005$).

Во II группе ($n = 39$) деканюлированы 27 (69%) пациентов (после первичной реконструкции). По данным, представленным на диаграммах, можно утверждать, что сроки

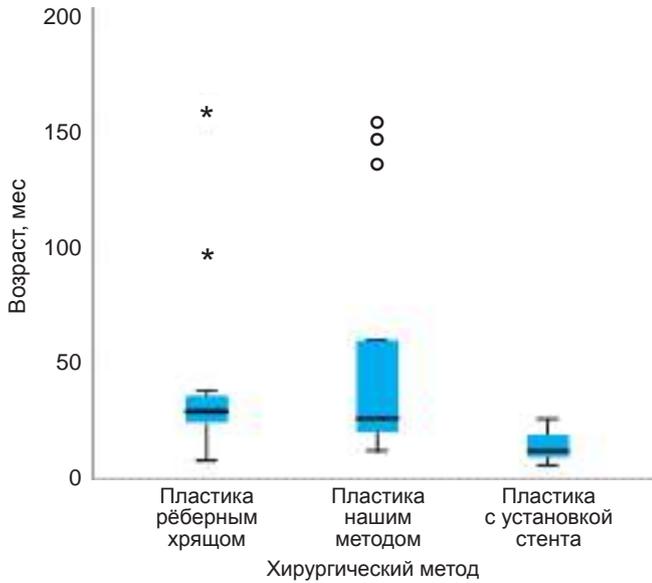


Рис. 8. Диаграмма распределения возраста пациентов II группы в зависимости от хирургического метода с применением критерия Краскела–Уоллиса.

Fig. 8. Bar chart of age distribution of patients from Group II depending on the surgical technique using Kruskal–Wallis test.

Таблица 3 / Table 3

Медиана (Me) возраста пациентов II группы на момент операции при каждом хирургическом методе

Median (Me) age of patients from Group II at the time of surgery for each surgical technique

Хирургический метод	Me, мес
Пластика с установкой рёберного хряща	29 (22,5; 29)
Пластика с установкой ТТ	137 (132; 0)
Пластика с рассечением задней стенки гортани и установкой ТТ (наш метод)	26 (16,5; 98)
Пластика гортани с установкой стента	12 (6; 0)

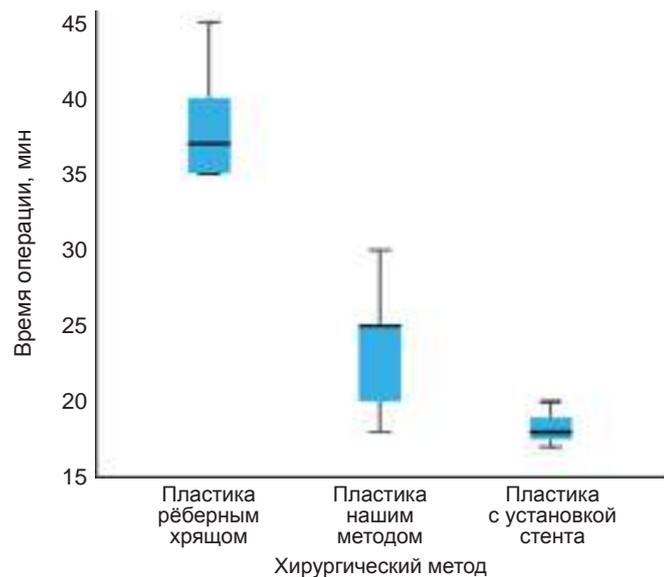


Рис. 9. Диаграмма распределения времени операции во II группе в зависимости от хирургического метода с применением критерия Краскела–Уоллиса.

Fig. 9. Bar chart of distribution of surgical time in Group II depending on the surgical technique using Kruskal–Wallis test.

деканюляции при всех трёх методах сравнительно одинаковые ($p > 0,005$) (рис. 10).

В I группе ($n = 39$) у 12 (31%) пациентов выявлен рецидив заболевания. По данным, представленным на диаграммах, можно утверждать, что сроки развития рецидива заболевания при всех трёх методах сравнительно одинаковые ($p > 0,005$) (рис. 11).

На кривой Kaplan–Meier (см. рис. 11) отображено отсутствие статистически достоверных различий срока деканюляции среди трёх методов во II группе (критерий Log Rank (Mantel–Cox) 0,099; $p > 0,005$).

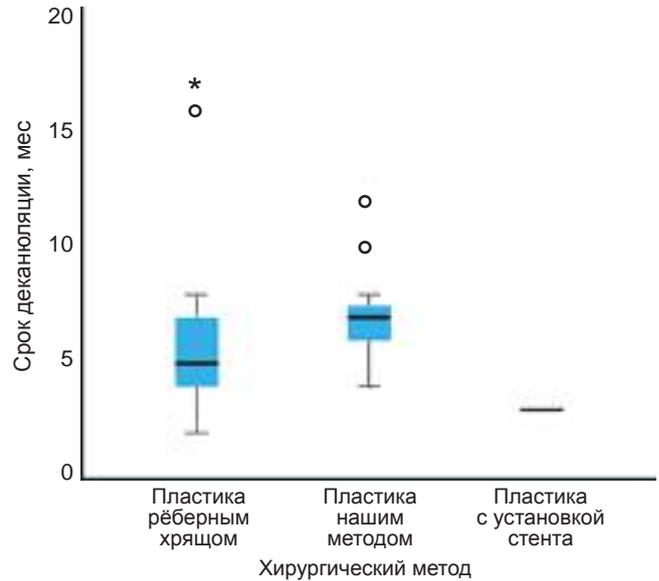


Рис. 10. Диаграмма распределения сроков деканюляции пациентов II группы в зависимости от хирургического метода с применением критерия Краскела–Уоллиса.

Fig. 10. Bar chart of decannulation term distribution in patients from Group II depending on surgical technique using Kruskal–Wallis test.

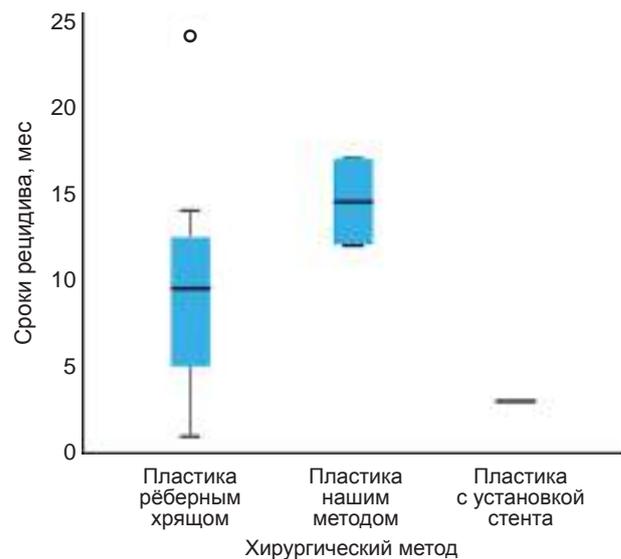


Рис. 11. Диаграмма распределения сроков рецидива заболевания пациентов II группы в зависимости от хирургического метода с применением критерия Краскела–Уоллиса.

Fig. 11. Bar chart of distribution of relapse-free time in Group II depending on the surgical technique using Kruskal–Wallis test.

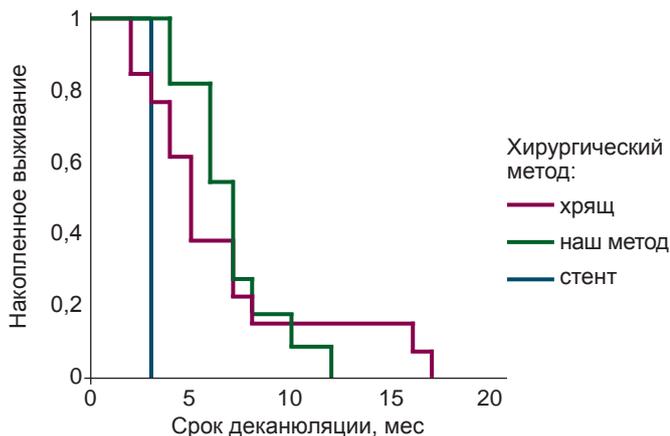


Рис. 12. Кривая Каплана–Мейера, отражающая общую долю деканюлированных пациентов во II группе.

Fig. 12. The Kaplan–Meier curve reflecting the total proportion of decannulated patients in Group II.

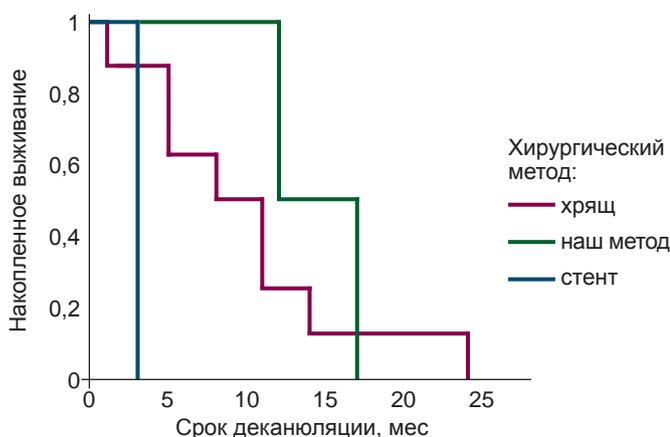


Рис. 13. Кривая Каплана–Мейера, отражающая общую свободу от рецидива заболевания пациентов во II группе.

Fig. 13. The Kaplan–Meier curve reflecting the general relapse-free period in patients from Group II.

На кривой Kaplan–Meier (рис. 12) отображено отсутствие статистического различия срока рецидива среди всех трёх методов хирургического лечения во II группе (критерий Log Rank (Mantel–Cox) 0,056; $p > 0,005$).

Обсуждение

На основании ретроспективного анализа пациентов с 2010 по 2019 г. нами выявлена тенденция применения новых хирургических методов лечения у пациентов с различной патологией ВДП. Таким образом, удалось оценить эффективность каждого метода при конкретной нозологии. Отметим, что в исследовании летальных исходов не было. Учитывая спектр патологии в нашем исследовании, были сформированы две основные группы: пациенты со стенозом III–IV степени и двусторонним параличом голосовых связок. Таким образом, уже по нозологии во многом были определены показания к открытому реконструктивному лечению.

Метод пластики ВДП с установкой аутохряща показал хорошие результаты лечения: деканюляция 54% в I группе и 62% – во II, процент рецидивов – 46% и 38% соответственно. В мировой литературе приводятся другие цифры успешного лечения – 80–90% [22, 23]. Предпочтительным считается одноэтапная ларингопластика, ввиду

более быстрого срока деканюляции (7–14 дней) и результатами успешного лечения в 88% [29]. В свою очередь нами использовалась исключительно двухэтапная пластика с сохранением трахеостомической трубки.

Метод пластики гортани с установкой ТТ в настоящее время в мире не имеет широкого применения [16, 17]. Однако в нашей работе он показал свои результаты деканюляции: 90% пациентов в I группе и 100% деканюлированных пациентов во II группе. Рецидив наблюдался в 10% в I группе, во II группе ($n = 2$) рецидива не было.

Операция, модифицированная в отделении тораальной хирургии (пластика гортани с рассечением задней стенки и установкой ТТ) зарекомендовала себя как метод выбора при различной патологии ВДП. Первичные результаты деканюляции составили 84% в I группе пациентов и 85% во II. Рецидив заболевания после пластики модифицированным методом равен 16% в I группе и 15% – во II. С появлением в 2016 г. пластики ВДП при помощи стента и сохранением трахеостомы, данный метод был применён к 9 больным. Успех лечения составил 40% в I группе и 33% во II. Рецидив заболевания – 60 и 66% соответственно, что является наименее эффективным результатом среди всех четырех реконструктивных методов, описанных в работе. В связи с фактом установки стента, во всех группах исследования одним из частых и грозных осложнений была миграция стента, что могло бы привести к летальному исходу, если не оказать вовремя профессиональную помощь ребёнку. Специфическим осложнением у детей-носителей ТТ является её обструкция (6 и 10% соответственно в каждой группе исследования). Данные осложнения связаны с особенностью ухода за трубкой, что формирует необходимость тщательного обучения родителей пациентов. Другим характерным осложнением для таких пациентов является спонтанная деканюляция, либо удаление трубки в результате игры и взаимодействия со стороны других детей (3% у пациентов I группы).

Во всех группах одним из частых осложнений являлась дисфагия в результате установки того или иного стента в просвет дыхательных путей. Это связано с боковым синдромом в послеоперационном периоде. Однако данное состояние во всех случаях купировалось консервативным путем. В ходе исследования I группы пациентов, нами выявлена наибольшая эффективность метода пластики гортани с установкой рёберного хряща у пациентов младшей группы (до 3 лет). Однако, основываясь на данных статистического анализа, метод пластики гортани с установкой стента имеет потенциал ввиду тенденции более короткого срока деканюляции. Применение метода пластики ВДП с установкой ТТ и нашей модификации (с рассечением задней стенки гортани) наглядно демонстрирует равную эффективность при применении у пациентов старшей группы с рубцовыми стенозами ВДП ($p > 0,005$). Проведя статистический анализ во 2-й группе ($n = 39$), нами установлено, что статистически достоверной разницы в частоте рестеноза и сроке деканюляции после пластики рёберным хрящом и пластики Т-образной трубкой в нашей модификации нет ($p > 0,005$).

Результаты показывают, что при двустороннем параличе гортани одинаково эффективно будет применение обоих методов лечения. Специалисты придерживаются тактики отсроченного лечения по достижению возраста 3–5 лет [14]. В нашем же исследовании операции проводились детям первого года жизни (25%) и детям в возрасте от 1 года до 3 лет (45%). Проведение реконструктивного лечения у такой большой когорты больных доказывает возможность и безопасность применения открытых

хирургических операций у детей до 3 лет. Таким образом, полученные результаты демонстрируют эффективность длительного стентирования у детей, преимущественно с рубцовыми стенозами и у детей старшего возраста. В ходе исследования получены данные об эффективности применения ларингопластики с использованием рёберного хряща у детей с параличом гортани.

Заключение

При пластике ВДП с использованием рёберного хряща при стенозах гортани ($n = 71$) уровень рецидива составил 46%. В то время как при пластике ВДП с использованием ТТ, а также после применения модифицированного метода – не более 16%.

При двустороннем параличе гортани после пластики ВДП с установкой рёберного аутоотрансплантата и пластике модифицированным методом с установкой ТТ статистически достоверной разницы в частоте рестеноза, а также в сроке деканюляции не выявлено ($p > 0,005$).

Усовершенствованный способ пластики ВДП с рассечением задней стенки гортани и установкой ТТ имеет равноценные по эффективности результаты при рубцовых стенозах и параличах гортани. В связи с этим данную методику можно считать универсальной и эффективной при лечении стенозов ВДП различной этиологии.

Первой линией лечения хронических грубых стенозов гортани можно считать пластику гортани с установкой ТТ и рассечением задней стенки гортани.

При параличе гортани возможно использование пластики рёберным хрящом наряду с пластикой ВДП с использованием ТТ с одинаковой эффективностью.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 1–4, 6–22, 27–28 см. в References)

5. *Клинические рекомендации. Парезы и параличи гортани*. М.: 2014; 1-2, 4-5, 6-7.
23. Вавин В.В., Давудов Х.Ш., Гарашенко Т.И., Юнусов А.С., Нажмудинов И.И., Поляков Д.П. Использование СО₂-лазера в эндоларингеальной хирургии постинтубационных стенозов гортани у детей. *Вопросы практической педиатрии*. 2019; 14(5): 34-8.
24. Шиленкова В.В. и соавт. Реабилитация голоса при одностороннем параличе гортани методом медиализации голосовой складки. *Вестник оториноларингологии*. 2010; 1: 83-5.
25. Разумовский А.Ю., Рачков В.Е., Митупов З.Б. Способ стентирования при реконструктивных операциях на гортани у детей. Патент № 2003118717; 2005.
26. Богомилский М.Р., Разумовский А.Ю., Митупов З.Б. *Диагностика и хирургическое лечение хронических стенозов гортани у детей*. М: ГЭОТАР-Медиа; 2007.

REFERENCES

1. Gerber M. E., Meyers A.D. *Laryngeal Stenosis*. 2018. Available at: emedicine.medscape.com.
2. Nair S., Nilakantan A., Sood A., A.Gupta. Challenges in the Management of Laryngeal Stenosis. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2016; 68(3): 294-9.
3. Nikolovski N., Kopacheva-Barsova G., Pejkovska A. Laryngotracheal Stenosis: A Retrospective Analysis of Their Aetiology, Diagnose and Treatment. *Open Access Maced J Med Sci*. 2019; 7(10): 1649-56.

4. Sittel C. Pathologies of the larynx and trachea in childhood. *GMS Curr Top Otorhinolaryngol Head Neck Surg*. 2014; 13: Doc 09.
5. *Clinical guidelines. Paresis and paralysis of the larynx [Klinicheskie rekomendacii. Parezy i paralichi gortani]*. Moscow; 2014; 1-2, 4-5, 6-7. (in Russian)
6. Ernster J.A. *Bilateral Vocal Fold Paralysis*. 2019. Available at emedicine.medscape.com.
7. Cotton R.T. Pediatric laryngeal stenosis. *J Pediatr Surg*. 1984; 19(6): 699-704.
8. Reilly B.K., Meyers A.D. *Laryngotracheal Reconstruction*. 2016. Available at emedicine.medscape.com.
9. Zawadzka-Glos L., Krajewska I. Treatment of subglottic stenosis in children. *Borgis - New Medicine*. 2013; 4: 111-3.
10. Bitara M.A., Al Barazia R., Barakeha R. Airway reconstruction: review of an approach to the advanced-stage laryngotracheal stenosis. *Brazilian journal of otorhinolaryngology*. 2017; 83(3): 299-312.
11. Jefferson N. D., Cohen A.P., Rutter M.J. Subglottic stenosis. *Seminars in Pediatric Surgery*. 2016; 3(25): 138-43
12. Samad I., Ch B., Akst L., Karataylı-Özgürsoy S., Teets K., Simpson M., Sharma A., Best R. A., Hillel A.T. Evaluation of Dyspnea Outcomes After Endoscopic Airway Surgery for Laryngotracheal Stenosis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2016; 142(11): 1075-81.
13. McClay J.E. Subglottic Stenosis in Children. 2019. Available at: emedicine.medscape.com.
14. Okamoto M., Nishijima E., Yokoi A., Nakao M., Bitoh Y., Arai H. Strategy for surgical treatment of congenital subglottic stenosis in children. *Pediatr Surg Int*. 2012; 28(11): 1115-8.
15. Holinger P.H., Kutnick S.L., Schild J.A., Holinger L.D. Subglottic stenosis in infants and children. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1976; 85(5): 591-9.
16. Smith L.P., Zur K.B., Jacobs I.N. Single- vs double-stage laryngotracheal reconstruction. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2010; 136(1): 60-5.
17. Rovó L., Erdélyi E., Tóbiás Z., Gal P. Slide laryngotracheoplasty for congenital subglottic stenosis in newborns and infants. *The Laryngoscope*. 2019; 130(4): 199-205.
18. Puma F., Farabi R., Urbani M., et al. Long-term safety and tolerance of silicone and self-expandable airway stents: an experimental study. *Ann Thorac Surg*. 2000; 69: 1030-4.
19. Wu F.J., Hu H.H., Hu S.H., et al. Application of T-tube placement in treating post-tracheotomy tracheal stenosis after two-way airway recanalization. *Chin J Tuberc Res Dis*. 2017; 40: 477-9.
20. Reilly B.K., Schloegel L.J., Patel N.J. *Laryngotracheal Reconstruction*. 2016. Available at: emedicine.medscape.com
21. P.Monnier. Partial cricotracheal resection and extended cricotracheal resection for pediatric laryngotracheal stenosis. *Thoracic Surgery Clinics*. 2018; 2(28): 177-87.
22. Hoetzenecker K., Schweiger T., Denk-Linnert D. M., Klepetko W. Pediatric airway surgery. *Journal of thoracic disease*. 2017; 6(9): 1663-71.
23. Vavin V.V., Davudov H.Sh., Garaschenko T.I., Yunusov A.S., Nadmudzhinov I.I., Polyakov D.P. The use of a CO₂-laser in endolaryngeal surgery of post-intubation laryngeal stenosis in children. *Voprosy Prakticheskoy Pediatrii*. 2019; 14(5): 34-8. (in Russian)
24. Shilenkova V.V. et. al. Rehabilitation of the voice for unilateral laryngeal paralysis by medializing the vocal fold. *Vestnik otolaringologii*. 2010; 1: 83-5. (in Russian)
25. Razumovsky A.Yu., Rachkov V.E., Mitupov Z.B. The Way to stenting for reconstructive laryngeal surgery in children. Патент RF N 2003118717; 2005. (in Russian)
26. Bogomilsky M.R., Razumovsky A.Yu., Mitupov Z.B. *Diagnostics and surgical treatment of chronic laryngeal stenosis in children [Dagnostika i khirurgicheskoe lechenie khronicheskikh stenozov u detei]* Moscow: Geotar-Media; 2007. (in Russian)
27. Montgomery W.W. T-tube tracheal stent. *Arch. Otolaryngol*. 1965; 82: 320-1.
28. Saghebi S.R., Zangi M., Tajali T., et al. The role of T-tubes in the management of airway stenosis. *Eur J Cardiothorac Surg*. 2013; 43: 934-9.

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2021

Комина Е.И.¹, Алхасов А.Б.^{1,2}, Русецкий Ю.Ю.^{1,3,4}, Лохматов М.М.^{1,3}, Яцык С.П.¹, Ратников С.А.¹, Романова Е.А.¹, Савельева М.С.¹

Эндоскопические методы лечения стенозов гортани у детей

¹ФГАУ «Национальный медицинский исследовательский центр здоровья детей» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 119991, г. Москва, Россия;²ФГАОУ ВО «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 117997, г. Москва, Россия;³ФГАОУ ВО «Первый московский государственный медицинский университет имени И.М. Сеченова» Министерства здравоохранения Российской Федерации (Сеченовский Университет), 119991, Москва, Россия;⁴ФГБУ «Центральная клиническая больница с поликлиникой Управления делами Президента Российской Федерации», 121359, г. Москва, Россия

Победители конкурса молодых специалистов на IX Всероссийской научно-практической конференции «Неотложная детская хирургия и травматология»

Введение. Стеноз подголосового пространства является одной из самых частых причин обструкции верхних дыхательных путей. Частота развития постинтубационных стенозов колеблется от 0,9 до 3%, по данным Rodriguez H. и соавт. [4], от 0,1 до 20%, по данным Haranal M.Y. и соавт. [5]. В настоящее время не существует единого мнения о выборе хирургической тактики лечения ввиду большого количества способов хирургического восстановления просвета гортани.

Материал и методы. В хирургическом торакальном отделении ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» МЗ РФ за период с 2019 по 2021 г. находились на лечении 44 пациента с постинтубационными сужениями подголосового пространства. Средний возраст пациентов в данной группе 4 года 8 мес ± 3 года 8 мес. Эндоскопические методы лечения применялись у 24 (54,5%) пациентов. С целью дообследования детям выполнялась ларингоскопия и фибробронхоскопия, мультиспиральная компьютерная томография и, при необходимости, рентгеноконтрастное исследование пищевода.

Результаты. Среднее количество эндоскопических процедур на одного пациента составило 2,9 ± 1,5 (от 1 до 7 процедур). У 20 (83,3%) пациентов отмечен хороший результат.

Заключение. Эндоскопические методы являются альтернативой открытой хирургии, позволяют достичь хорошего результата лечения стенозов подголосового пространства и избежать наложения трахеостомы у определенной группы пациентов, что по результатам нашего исследования составило 79,1%.

Ключевые слова: дети; стеноз гортани; лазерная вапоризация; бужирование.

Для цитирования: Комина Е.И., Алхасов А.Б., Русецкий Ю.Ю., Лохматов М.М., Яцык С.П., Ратников С.А., Романова Е.А., Савельева М.С. Эндоскопические методы лечения стенозов гортани у детей. *Детская хирургия*. 2021; 25(4): 244-248.
DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-244-248>

Для корреспонденции: Комина Елена Игоревна, врач-детский хирург хирургического торакального отделения ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» МЗ РФ, аспирант 2 года обучения, 119991, г. Москва. E-mail: kominaelena@gmail.com

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Алхасов А.Б. – концепция и дизайн исследования, написание текста; Русецкий Ю.Ю., Лохматов М.М., Яцык С.П. – концепция и дизайн исследования; Ратников С.А., Романова Е.А., Савельева М.С. – сбор и обработка материала; Комина Е.И. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, статистический анализ, написание текста. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 06 апреля 2021

Принята в печать 05 июня 2021

Komina E.I.¹, Alkhasov A.B.^{1,2}, Rusetsky Yu. Yu.^{1,3,4}, Lokhmatov M.M.^{1,3}, Yatsyk S.P.¹, Ratnikov S.A.¹, Romanova E.A.¹, Savelyeva M.S.¹

Endoscopic treatment of subglottic stenosis in children

¹National Medical Research Center of Children's Health, 119991, Moscow, Russia;²Pirogov Russian National Research Medical University, 117997, Moscow, Russia;³Sechenov First Moscow State Medical University, 119991, Moscow, Russia;⁴Central Clinical Hospital with Outpatient Unit of Department of Presidential Affairs, 121359, Moscow, Russia

Introduction. Subglottic stenosis is one of the most common causes of upper airway obstruction. The incidence of post-intubation stenosis ranges from 0.9% to 3% (Rodriguez H. et al.), or from 0.2% to 20% (Haranal M.Y. et al.). Currently, there is no consensus on the choice of surgical tactics due to a large number of modalities for surgical restoration of the laryngeal lumen.

Material and methods. 44 patients with postintubation laryngeal stenosis were treated in the surgical thoracic department of the National Medical Research Center of Children's Health subordinate to the Ministry of Health of the Russian Federation during 2019-2021. The average age of patients in this group was 4 years 8 months ± 3 years 8 months. Endoscopic treatment was done to 24 patients (54.5%). Laryngoscopy, fibrobronchoscopy, multispiral computed tomography and, if necessary, barium esophagogram were done for additional diagnostics.

Results. The average number of endoscopic procedures per patient was 2.9 ± 1.5 (range from 1 to 7). Good results were seen in 20 patients (83.3%).

Conclusions. Endoscopic techniques are alternative options to open reconstructive surgery. These techniques give good results in treating stenoses in the subglottic space and give a good chance to avoid tracheostomy in a certain group of patients, which, according to the results of our study, was as large as 79.1%.

Key words: children; laryngeal stenosis; laser vaporization; bougienage.

For citation: Komina E.I., Alkhasov A.B., Rusetsky Yu.Yu., Lokhmatov M.M., Yatsyk S.P., Ratnikov S.A., Romanova E.A., Savelyeva M.S. Endoscopic treatment of subglottic stenosis in children. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 244-248. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-244-248> (In Russian)

For correspondence: Elena I. Komina, MD, post-graduate student, surgeon at department of thoracic in the National Medical Research Center for Children's Health, Moscow, 119991, Russia. E-mail: kominaelena@gmail.com.

Information about authors:

Komina E.I., <https://orcid.org/0000-0002-9808-8682>
Rusetsky Yu. Yu., <https://orcid.org/0000-0001-5574-8292>
Yatsyk S.P., <https://orcid.org/0000-0002-0764-1287>
Romanova E.A., <https://orcid.org/0000-0003-1260-180X>

Alkhasov A.B., <https://orcid.org/0000-0003-3925-4991>
Lokhmatov M.M., <https://orcid.org/0000-0002-8305-7592>
Ratnikov S.A., <https://orcid.org/0000-0003-2082-3998>
Savelyeva M.S., <https://orcid.org/0000-0003-0377-2172>

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: Alkhasov A.B. – the concept and design of the study; Rusetsky Yu.Yu., Lokhmatov M.M., Yatsyk S.P. – the concept and design of the study; Ratnikov S.A., Romanova E.A., Savelyeva M.S. – the collection and processing of the material; Komina E.I. – the concept and design of the study, the collection and processing of the material, statistical analysis, writing a text. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: April 06, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

Стеноз подголосового пространства является одной из самых частых причин обструкции верхних дыхательных путей [1]. Стеноз гортани – это врожденное или приобретенное сужение гортани, вызывающее нарушение проходимости дыхательных путей. Приобретенные стенозы могут быть связаны с интубацией трахеи, травмами, ожогами, воспалением, новообразованиями, аутоиммунными заболеваниями [2]. В 90% случаев сужение развивается в результате эндотрахеальной интубации [3]. Частота развития постинтубационных стенозов колеблется от 0,9 до 3%, по данным Rodríguez H. и соавт. [4], от 0,1 до 20%, по данным Naganal M.Y. и соавт. [5]. В связи с повышением выживаемости детей с очень низкой и экстремально низкой массой тела, нуждающихся в длительной искусственной вентиляции легких, возросло количество детей с постинтубационными стенозами подголосового пространства различной степени выраженности [4, 6]. Часто развитие постинтубационного стеноза может быть пропущено, и дети могут длительно получать лечение по поводу бронхиальной астмы, бронхолегочной дисплазии или ларингита [7]. В настоящее время не существует единого мнения о выборе хирургической тактики лечения ввиду большого количества способов хирургического восстановления просвета гортани [8]. Лечение приобретенных сужений подсвязочного пространства в педиатрической практике является неприятным и болезненным событием, как для пациентов, так и для их родственников и требует многочисленных процедур [9]. Диагностическая и лечебная тактика должны зависеть от возраста пациента и тяжести поражения [10]. Основная цель любого метода лечения – восстановление и поддержание проходимости просвета дыхательных путей, а также отсутствие аспирационного синдрома и сохранение голоса [2].

Цель исследования – улучшить результаты хирургического лечения пациентов с постинтубационными сужениями подголосового пространства.

Материал и методы

В хирургическом торакальном отделении ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» МЗ РФ за период с 2019 по 2021 г. находились на лечении 44 пациента с постинтубационными сужениями подголосового пространства. Мальчиков было 32, девочек – 12. Трахеостомия ранее была выполне-

на 26 пациентам по месту жительства в связи с явлениями дыхательной недостаточности.

Эндоскопические методы лечения применялись у 24 (54,5%) пациентов. Средний возраст пациентов в данной группе составил 4 года 8 мес ± 3 года 8 мес. При распределении детей по степени стеноза преобладали дети со II степенью стеноза по шкале Myer–Cotton (табл. 1).

Всем пациентам в предоперационном периоде с целью оценки состояния надгортанника, подвижности голосовых связок, локализации, степени стеноза по шкале Myer–Cotton, протяженности сужения, плотности рубцовой ткани, а также состояния слизистой дыхательных путей выполнялась ларингоскопия и трахеобронхоскопия (рис. 1).

Также, при необходимости, для оценки протяженности стеноза и исключения наличия сосудистых аномалий выполнялась мультиспиральная компьютерная томография с внутривенным контрастированием (рис. 2).

Учитывая отрицательное влияние желудочно-пищеводного рефлюкса на результаты лечения пациентов со стенозами дыхательных путей, при наличии характерных жалоб, пациентам выполнялась фиброэзофагогастроудеоскопия и рентгенконтрастное исследование пищевода с последующим решением вопроса о необходимости назначения консервативной антирефлюксной терапии.

Эндоскопические методы лечения включали в себя бужирование гортани с использованием металлических бужей Гегара или тубусов жестких бронхоскопов KarlStorz возрастного диаметра, а также лазерную вапоризацию рубца с использованием хирургического диодного лазера «ЛАХТА-МИЛОН». Оптический световод

Таблица 1 / Table 1

Распределение детей (24 пациента), которым применялись эндоскопические методы по степени стеноза по шкале Myer–Cotton

Distribution of children (n = 24) who were treated endoscopically depending on the stenosis degree by the Myer–Cotton scale

Степень стеноза	Число пациентов
I	2
II	13
III	8
IV	1

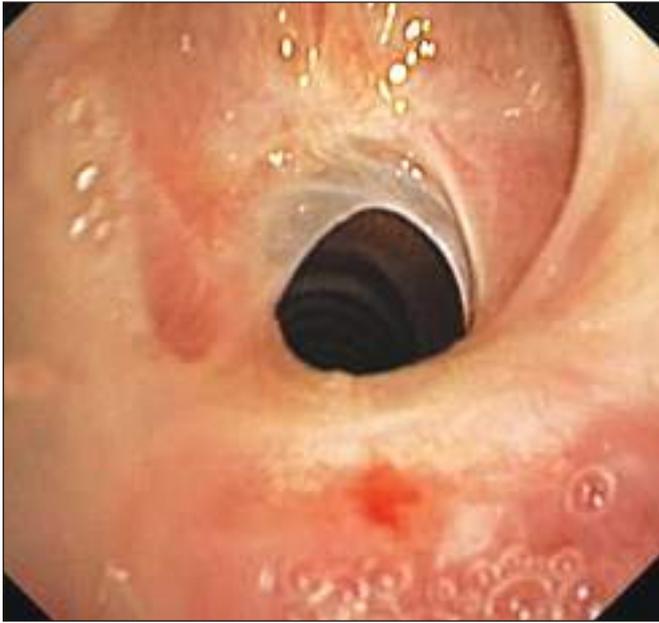


Рис. 1. Трахеобронхоскопия: постинтубационный рубцовый стеноз гортани.

Fig. 1. Tracheobronchoscopy: postintubation scar stenosis of the larynx.

проводился через рабочий канал фибробронхоскопа или через рабочий канал жесткого бронхоскопа, после чего выполнялась лазерная вапоризация под контролем зрения, использовался непрерывный режим с максимальной мощностью 15 Вт (рис. 3).

При выполнении лазерной вапоризации мы избегали радиального иссечения рубцовой ткани с целью профилактики выраженного отёка дыхательных путей и формирования грубого концентрического рубца в отсрочен-



Рис. 2. МСКТ органов грудной клетки с внутривенным контрастированием: протяжённый стеноз гортани.

Fig. 2. Multispiral computed tomography of the chest organs with intravenous contrast: extended laryngeal stenosis.



Рис. 3. лазерная вапоризация рубцового стеноза гортани.

Fig. 3. Laser vaporization of scar stenosis of the larynx.

ном послеоперационном периоде. В послеоперационном периоде все дети получали ингаляционную (в течение 10 дней) и внутривенную гормональную терапию (в среднем 2–4 дня).

Оценка результатов лечения осуществлялась по следующим критериям: восстановление просвета дыхательных путей, наличие симптомов дыхательной недостаточности, аспирационного синдрома.

Хороший результат: полное восстановление просвета гортани, а также отсутствие симптомов дыхательной недостаточности и аспирационного синдрома. *Удовлетворительный результат:* уменьшение симптомов дыхательной недостаточности при сохранении деформации или остаточного сужения подвязочного пространства или наличие аспирационного синдрома. *Неудовлетворительный результат:* возникновение значительного рестеноза с появлением выраженных симптомов дыхательной недостаточности, требующих повторного хирургического лечения, а также выраженный аспирационный синдром.

Результаты

Среднее количество эндоскопических процедур на одного пациента составило $2,9 \pm 1,5$ (от 1 до 7 процедур; табл. 2). В результате применения эндоскопических методов лечения удалось избежать наложения трахеостомы

Таблица 2 / Table 2

Эндоскопические процедуры Endoscopic procedures

Показатель	Эндоскопические процедуры
Число пациентов	24
Среднее количество процедур	$2,9 \pm 1,5$
Хороший результат, абс. (%)	20 (83,3)
Неудовлетворительный результат, абс. (%)	4 (16,7)

у 19 (79,1%) пациентов. Один пациент деканюлирован после выполнения бужирования гортани и лазерной фотокоагуляции рубца (трахеостома была наложена по месту жительства). У 20 (83,3%) пациентов отмечен хороший результат, у 4 (16,7%) – неудовлетворительный результат вследствие неэффективности эндоскопических методов лечения и развития рестеноза, в дальнейшем данным пациентам выполнена пластика гортани со стентированием Т-образной трубкой. У них отмечался грубый, протяжённый или «зрелый» рубцовый стеноз, а также сочетание стеноза и пареза гортани, одному из этих пациентов ранее была наложена трахеостома по месту жительства.

Обсуждение

Лечение пациентов со стенозами гортани может включать в себя эндоскопические методы лечения, открытые вмешательства, а также наложение трахеостомы с целью купирования дыхательной недостаточности [2]. Трахеостомия играет важную роль в лечении пациентов со стенозами гортани. Решение о необходимости наложения трахеостомы зависит от нескольких факторов: тяжесть стеноза, возраст пациента, наличие сопутствующих аномалий (особенно пороков развития челюстно-лицевой области) и опыт хирургической бригады [11]. Однако наличие трахеостомы не исключает возникновения таких осложнений, как формирование грануляционной ткани над местом стояния трахеостомической трубки, спонтанной деканюляции или закупорки просвета трубки, что может привести к летальному исходу [12].

В настоящее время имеются два основных метода лечения: эндоскопические вмешательства и открытая реконструктивная хирургия [13]. Не существует чётко установленных критериев для применения эндоскопических методов лечения, в том числе для баллонной дилатации, бужирования, лазерной вапоризации и топического введения лекарственных препаратов. Как правило, решение о выборе метода лечения зависит от степени тяжести и морфологии стеноза, а также от опыта хирурга [14, 11]. Monnier и соавт. в своём исследовании разработали алгоритм отбора пациентов для эндоскопического лечения: степень стеноза I–II по шкале Myer–Cotton, протяжённость стеноза менее 1,5 см, «пленчатый» стеноз при сохранном хрящевом каркасе [15]. По данным Simpson и соавт., условиями успешной лазерной вапоризации является отсутствие циркулярного рубца или тонкий рубец без вовлечения хрящей [16]. В нескольких исследованиях было продемонстрировано, что раннее начало дилатации после возникновения симптомов позволяет сформировать более эластичную фиброзную ткань и достичь лучших результатов лечения [17].

За последние несколько десятилетий достигнуты значительные успехи в развитии малоинвазивных хирургических процедур для лечения детей с подвязочными стенозами. Эндоскопические процедуры могут использоваться в качестве основного лечения, а также в качестве дополнения к открытым хирургическим вмешательствам [18]. В случае своей эффективности, эндоскопические методы имеют следующие преимущества: снижение количества послеоперационных осложнений, сокращение сроков госпитализации, сокращение времени пребывания в ОРИТ и сроков послеоперационной седации [19]. По данным различных литературных источников, эффективность эндоскопических методов лечения колеблется от 40 до 100%, что может быть связано с вариабельностью типов стенозов, наличием сопутствующей патологии и применением различных методов [13, 18]. Quesnel A.M. и соавт. в своём исследовании, включающем 40 пациен-

тов, сообщают об успешном излечении 58% пациентов с применением различных эндоскопических методов [18]. S. Bakthavachalam, J.E. McClay. в своей работе указывают на снижение успешности мини-инвазивных методов лечения со 100% у детей с I степенью стеноза до 76% у детей с III степенью [13]. Такие резкие различия частично могут быть связаны с неправильным отбором пациентов для малоинвазивного лечения [18].

Баллонная дилатация использовалась для лечения стенозов гортани и трахеи у детей еще в 1980-х гг. и давала обнадеживающие результаты [9]. В обзоре от 2013 г. указано, что данный метод имеет хороший краткосрочный результат и небольшое количество осложнений, а неудачные попытки связаны с более грубыми и тяжёлыми стенозами [20]. Баллонная дилатация с использованием катетеров для ангиопластики также описана в работе Hebra A. и соавт. (1991 г.), авторы отмечали клиническое улучшение у 54% пациентов [21]. Maunsell R., Avelino M.A. в своём исследовании, включающем 34 ребёнка, указывают на 100% эффективность баллонной дилатации у детей с острыми поствирусными стенозами и 38% эффективность у детей с хроническими стенозами и на увеличение шансов у детей, у которых не было трахеостомы [9].

Simpson и соавт. смогли достичь хорошего результата без выполнения трахеостомии у 77,6% пациентов с использованием эндоскопического лазера [16]. Nouraei и соавт. сообщили о 78% успешного применения лазерной хирургии [22]. С другой стороны, Leventhal и соавт. указали на возможность деканюлировать лишь 57% пациентов после применения лазерной вапоризации стеноза [23]. По мнению Sevizci R. и соавт., на результаты лазерной вапоризации влияют тяжесть и протяжённость стеноза, вовлечение перстневидного хряща, степень стеноза по шкале Myer–Cotton, этиология стеноза и наложенная ранее трахеостома [24].

Эндоскопические методы можно использовать для успешного лечения различных видов стенозов подголосового пространства, однако следует учитывать, что вероятность успеха снижается с увеличением степени стеноза [13]. Реконструктивные вмешательства проводятся пациентам, у которых отмечена неэффективность эндоскопических методов, а также при высоком риске неэффективности малоинвазивных технологий при зрелых, тяжёлых и протяжённых стенозах [11].

Несмотря на достигнутые успехи, лечение детей со стенозами гортани остаётся сложной задачей. Лечение каждого пациента должно быть индивидуальным, часто может потребоваться сочетание эндоскопических и открытых процедур для достижения удовлетворительного результата [5].

Заключение

Таким образом, результаты нашего исследования показывают, что у детей со стенозами гортани необходим персонализированный подход к выбору методов лечения. Эндоскопические методы являются альтернативой открытой хирургии, позволяют достичь хорошего результата лечения стенозов подголосового пространства и избежать наложения трахеостомы у определённой группы пациентов, что по результатам нашего исследования составило 79,1%. Эндоскопические методы лечения показаны у детей с непротяжёнными, негрубыми стенозами, при отсутствии грубого циркулярного рубца, а также с сохранённой подвижностью голосовых связок. У детей с протяжёнными, «зрелыми» и циркулярными стенозами тяжелой степени (III–IV степень), а также при сочетании стеноза и пареза гортани показано выполнение пластики гортани со стентированием Т-трубкой.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 1–7, 9–24 см. в REFERENCES)

8. Разумовский А.Ю., Митупов З.Б. Хирургическое лечение хронических стенозов гортани у детей. *Детская оториноларингология*. 2012; 3: 25-30.

REFERENCES

1. Botto H.A. et. al. Diagnosis and treatment of pediatric subglottic stenosis: experience in a tertiary care center. *Archivos argentinos de pediatria*. 2015; 113(4): 368-72.
2. Nair S. et. al. Challenges in the management of laryngeal stenosis. *Indian Journal of Otolaryngology and Head & Neck Surgery*. 2016; 68(3): 294-9.
3. Caruselli M. et. al. Post intubation tracheal stenosis in children. *Pediatric reports*. 2014; 6(3): 49-50.
4. Haranal M.Y. et. al. A simplified approach for the management of post-intubation tracheal stenosis. *Indian Journal of Thoracic and Cardiovascular Surgery*. 2017; 33(4): 309-15.
5. Rodríguez H. et al. Post-intubation subglottic stenosis in children. Diagnosis, treatment and prevention of moderate and severe stenosis. *Acta Otorrinolaringologica (English Edition)*. 2013; 64(5): 339-44.
6. Jefferson N.D., Cohen A.P., Rutter M.J. Subglottic stenosis. *Seminars in pediatric surgery*. 2016; 25(3): 138-43.
7. Ashfaque Ansari, Annju Thomas. Multimodality surgical approach in management of laryngotracheal stenosis. *Case reports in otolaryngology*. 2018; Article ID 4583726, 11 pages, 2018. <https://doi.org/10.1155/2018/4583726>
8. Razumovskiy A.Y., Mitupov Z.B. Surgical treatment of chronic laryngeal stenosis in children. *Deitskaya otorinolaringologiya*. 2012; 3: 25-30. (in Russian)
9. Maunsell R., Avelino M.A. G. Balloon laryngoplasty for acquired subglottic stenosis in children: predictive factors for success. *Brazilian Journal of otorhinolaryngology*. 2014; 80(5): 409-15.
10. Remacle M., Eckel H.E., ed. *Surgery of larynx and trachea*. Berlin: Springer: 2010.
11. Redondo-Sedano J. et. al. Laryngeal stenosis in children: types, grades and treatment strategies. *Journal of pediatric surgery*. 2019; 54(9): 1933-7.
12. Nassif C. et. al. Tracheotomy in children: A series of 57 consecutive cases. *European annals of otorhinolaryngology, head and neck diseases*. 2015; 132(6): 321-5.
13. Bakthavachalam S., McClay J.E. Endoscopic management of subglottic stenosis. *Otolaryngology – Head and Neck Surgery*. 2008; 139(4): 551-9.
14. Cook R.D. et. al. Subglottic Stenosis: Correlation between Computed Tomography and Bronchoscopy. *Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology*. 1999; 108(9): 837-41.
15. Maeda K., Ono S., Baba K. Management of laryngotracheal stenosis in infants and children: the role of re-do surgery in cases of severe subglottic stenosis. *Pediatric surgery international*. 2013; 29(10): 1001-6.
16. Simpson G.T. et. al. Predictive factors of success or failure in the endoscopic management of laryngeal and tracheal stenosis. *Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology*. 1982; 91(4): 384-8.
17. Maksoud-Filho J G. et. al. Early diagnostic and endoscopic dilatation for the treatment of acquired upper airway stenosis after intubation in children. *Journal of pediatric surgery*. 2008; 43(7): 1254-8.
18. Quesnel A.M. et. al. Minimally invasive endoscopic management of subglottic stenosis in children: success and failure. *International journal of pediatric otorhinolaryngology*. 2011; 75 (5): 652-6.
19. Lando T., April M.M., Ward R.F. Minimally invasive techniques in laryngotracheal reconstruction. *Otolaryngologic Clinics of North America*. 2008; 41(5): 935-46.
20. Lang M., Brietzke S.E. A systematic review and meta-analysis of endoscopic balloon dilation of pediatric subglottic stenosis. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2014; 150(2): 174-9.
21. Hebra A. et. al. Balloon tracheoplasty in children: results of 15-year experience. *Journal of pediatric surgery*. 1991; 26(8): 957-61.
22. Nouraei S.A.R., Sandhu G.S. Outcome of a multimodality approach to the management of idiopathic subglottic stenosis. *The Laryngoscope*. 2013; 123(10): 2474-84.
23. Leventhal D.D., Krebs E., Rosen M.R. Flexible laser bronchoscopy for subglottic stenosis in the awake patient. *Archives of Otolaryngology – Head & Neck Surgery*. 2009; 135(5): 467-71.
24. Cevizci R. et al. Flexible CO2 laser treatment for subglottic stenosis. *Journal of Craniofacial Surgery*. 2017; 28(4): 983-4.

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2021

Киреева Н.Б.^{1,2}, Тиболов А.З.², Гудкова М.П.¹

Лечение скрытого полового члена у мальчиков

¹ФГБОУ ВО «Приволжский исследовательский медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 603950, г. Нижний Новгород, Россия;²ГБУЗ НО «Нижегородская областная детская клиническая больница», 603136, г. Нижний Новгород, Россия

Введение. Скрытый половой член (СПЧ) – порок развития, характеризующийся нормально развитыми, но аномально расположенными кавернозными телами в окружающих тканях лона или мошонки, проявляющийся визуальным уменьшением размеров ствола полового члена. Наиболее часто встречается утопленный половой член (УПЧ). Это довольно распространённая патология, требующая, как правило, оперативного лечения.

Цель исследования – анализ результатов лечения УПЧ с применением усовершенствованной хирургической методики.

Материал и методы. С 2014 по 2019 г. пролечены 40 мальчиков с диагнозом СПЧ в возрасте от 2 до 16 лет (средний возраст $9 \pm 1,59$ лет). УПЧ диагностирован у 35 (87,5%) детей, перепончатый половой член (ППЧ) — у 5 (12,5%). Первичный УПЧ имел место у 18 (51,4%) детей, УПЧ на фоне надлобкового ожирения – у 17 (48,6%). Два ребёнка (5 %) оперированы после предшествующего обрезания. Показаниями к операции были врождённый первичный СПЧ, вторичный СПЧ у подростков при недостаточной визуализации полового члена, психологическом дискомфорте пациента и отсутствии значимого клинического эффекта при использовании консервативных мер. Средний возраст детей с первичным СПЧ составил $3,9 \pm 2,48$ лет, с вторичным СПЧ на фоне лобкового ожирения – $12 \pm 3,84$. При оперативном лечении применяли циркулярный или циркулярный и вентральный срединный разрез до середины мошонки с последующей мобилизацией полового члена от сращений, иссечением жировой ткани в области лона, фиксацией пубопенильного и пенокротального углов нерассасывающейся нитью. Авторами предложен новый способ фиксации кожи крайней плоти с использованием насечек (2 на вентральной и 2 на дорзальной), через которые кожу подшивали к белой оболочке ствола для предупреждения её дистального смещения.

Результаты. У всех больных получен хороший анатомический и функциональный результат. Описаны детали оперативной техники и приведён обзор литературы по данной проблеме.

Заключение. При лечении УПЧ усовершенствованная хирургическая методика с дополнительным использованием насечек позволяет надёжно фиксировать кожу крайней плоти в стволочной части, предотвращая её дистальное смещение.

Ключевые слова: скрытый половой член; мальчики; оперативное лечение

Для цитирования: Киреева Н.Б., Тиболов А.З., Гудкова М.П. Лечение скрытого полового члена у мальчиков. *Детская хирургия*. 2021; 25(4): 249-253. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-249-253>

Для корреспонденции: Киреева Надежда Борисовна, профессор кафедры детской хирургии ФГБОУ ВО ПИМУ МЗ РФ, 603950, г. Нижний Новгород; ГБУЗ НО НОДКБ, 603136, г. Нижний Новгород. E-mail: KireevaNB@yandex.ru

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Киреева Н.Б. – концепция и дизайн исследования, написание текста, иллюстрации, редактирование; Тиболов А.З. – сбор и обработка материала; Гудкова М.П. – сбор и обработка материала, статистический анализ. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 14 мая 2021
Принята в печать 05 июня 2021

Kireeva N.B.^{1,2}, Tibilov A.Z.², Gudkova M.P.¹

Treatment of the hidden penis in boys

¹Privolzhsky Research Medical University, 603950, Nizhny Novgorod, Russia;²Nizhny Novgorod Regional Children's Educational Hospital, 603136, Nizhny Novgorod, Russia

Introduction. "Hidden penis" (HP) is a developmental malformation of the penis characterized by normally developed, but abnormally located cavernous bodies in the surrounding tissues of the symphysis or scrotum, manifested by the visually shortened penis trunk. The most common type is «buried» penis (BP). This pathology requires, as a rule, surgical treatment.

Purpose. To assess outcomes of BP treatment with an improved surgical technique.

Material and methods. 40 boys, aged from 2 to 16 (average age 9 ± 1.59) and diagnosed with HP, were treated in 2014-2019. BP was diagnosed in 35 children (87.5%), webbed penis (WP) – in five (12.5%). Primary BP was in 18 children (51.4%) and BP in combination with the suprapubic obesity - in 17 patients (48.6%). Two children (5%) were operated after the previous circumcision. Indications for surgery were: congenital primary HP, secondary HP in adolescents with insufficient visualization of the penis, psychological discomfort of the patient and the absence of significant clinical effects after conservative care. The average age of children with primary HP was 3.9 ± 2.48 ; with secondary HP and pubic obesity - 12 ± 3.84 years. During surgery, circular or circular and ventral midline incisions to the middle of the scrotum were used; they were followed by mobilization of the penis from adhesions, excision of adipose tissue in the bosom, fixation of the pubopenile and penoscrotal angles with a non-absorbable surgical thread. The authors have proposed a new technique for foreskin fixation using 2 ventral and 2 dorsal incisions, through which the skin was sutured to the deep fascia of the penis to prevent its distal slipping.

Results. All patients had good anatomical and functional results. The authors describe the developed surgical technique in details; they also make literature review on the discussed problem.

Conclusion. In the treatment of HP an improved surgical technique with the additional use of incisions allows you to reliably fix the skin of the foreskin on the trunk of the penis, avoiding its distal displacement.

Key words: hidden penis; boys; surgical treatment

For citation: Kireeva N.B., Tibilov A.Z., Gudkova M.P. Treatment of the hidden penis in boys. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 249-253. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-249-253> (In Russian)

For correspondence: *Nadezhda B. Kireeva*, MD, pediatric surgeon, professor at faculty of pediatric surgery at the Privolzhsky Research Medical University and at the Nizhny Novgorod Regional Children's Educational Hospital, 603136, Nizhniy Novgorod, Russia. E-mail: KireevaNB@yandex.ru

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: *Kireeva N.B.* – the concept and design of the study, writing a text, illustrations, editing; *Tibilov A.Z.* – the collection and processing of the material; *Gudkova M.P.* – the collection and processing of the material, statistical analysis. *All co-authors* – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: May 14, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

Скрытый (concealed, hidden penis) половой член (СПЧ) в детском возрасте — это патология, которая проявляется визуальным уменьшением его размеров. Истинная заболеваемость СПЧ неизвестна, но сообщается, что у 9% детей, поступивших для первичного обрезания крайней плоти, и у 63% пациентов, направленных на повторную операцию после обрезания, имелись доказательства наличия СПЧ [1]. По мнению *Srinivasan A.K.* и соавт. [2], — это распространённая патология, с которой приходится сталкиваться детскому урологу. Термин “неприметный (скрытый) половой член” (“inconspicuous penis”) введён *Bergeson P.S.* и соавт. [3] в 1993 г. Он включает все формы в соответствии с классификацией *Maizels M.* и соавт. от 1986 г. в основополагающую статью, в которой изложена система классификации СПЧ и определена терминология, которой пользуются по сей день: “похороненный (утопленный) половой член” (buried penis), перепончатый (webbed penis) и половой член в ловушке, захваченный пенис (trapped penis) [2].

В классификации *Рудина Ю.Э.* и соавт. 2003 г. СПЧ включает в себя 3 формы: утопленный (УПЧ), перепончатый (ППЧ) и пенискоротальную транспозицию [4].

Наиболее часто встречается такой вид скрытого полового члена, как утопленный, представленный обычно в виде двух форм: первичного СПЧ и СПЧ у подростков с выраженным надлобковым ожирением.

Центральным методом лечения является оперативный, преимущество которого заключается в полной коррекции анатомических аномалий при СПЧ.

Проблема лечения СПЧ актуальна в детской урологии и андрологии, так как до настоящего времени не определены оптимальные сроки и способы оперативного лечения патологии.

Цель исследования — анализ результатов лечения утопленного полового члена с применением усовершенствованной хирургической методики.

Материал и методы

В клинике детской хирургии ПИМУ на базе ГБУЗ НО НОДКБ с 2014 по 2019 г. пролечены 40 мальчиков с диагнозом СПЧ в возрасте от 2 до 16 лет (средний возраст $9 \pm 1,59$ лет). УПЧ диагностирован у 35 (87,5%) детей, ППЧ — у 5 (12,5%). Из 35 детей с УПЧ первичный СПЧ (рис. 1) имел место у 18 (51,4%) детей, СПЧ на фоне надлобкового ожирения — у 17 (48,6%) (рис. 2).

У 20 (50%) детей СПЧ сочетался с фимозом, у 3 (7,5%) — с короткой уздечкой полового члена. У одного ребёнка имел место сочетание вторичного СПЧ с коронарной формой гипоспадии. 2 (5%) ребёнка оперированы после предшествующего обрезания в ЦРБ. Средний возраст детей с первичным СПЧ составил $3,9 \pm 2,48$ лет, с СПЧ на фоне лобкового ожирения — $12 \pm 3,84$.

Диагноз СПЧ был установлен на основании данных анамнеза, осмотра и клинического обследования.

Критерии включения — клиническая картина УПЧ, ППЧ.

Критерии исключения — члено-мошоночная транспозиция.

До операции дети с УПЧ и ожирением получали диету, лечебную гимнастику, местно — аппликации андрогеля. При необходимости консультировались эндокринологом. Отсутствие значимого эффекта от консервативного лечения на протяжении 6 мес — 1 года, психологический дискомфорт служили показанием к оперативному лечению.



Рис. 1. Первичный СПЧ у ребёнка С., 2 года.
Fig. 1. Primary HP in child С., 2 years old.



Фот. 2. Вторичный СПЧ у мальчика А., 9 лет.
Fig. 2. Secondary HP in boy А., 9 years old.



Рис. 3. Нанесение насечек (2) на вентральной поверхности полового члена, через которые кожа крайней плоти фиксирована к белочной оболочке рассасывающейся нитью PDS 5 «0».

Fig. 3. Incisions (2) on the ventral surface of the penis through which the skin of the foreskin is fixed to the deep fascia by absorbable thread PDS 5 “0”.



Рис. 4. Нанесение насечек (2) на дорзальной поверхности полового члена, через которые кожа крайней плоти фиксирована к белочной оболочке рассасывающейся нитью PDS 5 «0».

Fig. 4. Incisions (2) on the dorsal surface of the penis through which the skin of the foreskin is fixed to the deep fascia with absorbable thread PDS 5 “0”.

Способ оперативного лечения определялся видом УПЧ. У пациентов с первичным УПЧ оперативное лечение заключалось в декутанализации полового члена с полным высвобождением стволовой части от сращений, последующей фиксацией члено-мошоночного, при необходимости, пубопенильного углов, восстановлением кожного покрова с нанесением насечек для предотвращения ретракции препуция.

У пациентов с супрапубикальным ожирением применяли циркулярный и вентральный срединный разрез до середины мошонки с последующей мобилизацией полового члена от сращений, иссечением жировой ткани в области лона, фиксацией пубопенильного и пеноскrotального углов нерассасывающейся нитью, восстановлением кожного покрова с нанесением насечек для предупреждения дистального смещения препуция.

Детям с ППЧ применяли поперечное пересечение “паруса” с Z-образной пластикой кожи.

Был предложен способ фиксации кожи крайней плоти при операции по поводу скрытого (утопленного) полового члена у мальчиков (патент № 2728585 «Способ хирургического лечения утопленного полового члена у мальчиков», авторы: Киреева Н.Б., Тибилов А.З., Гудкова М.П., Киреева О.А., дата приоритета: 20.03.2020, опубликовано 30.07.2020, Бюллетень № 22) [5]. За прототип данного способа взят способ лечения СПЧ, предложенный Мельниковой С.А., Цап Н.А. и соавт. 2010 [6]. Способ осуществляли следующим образом. Операцию начинали с того, что проводили обнажение головки полового члена и прошивали её выше меатуса нитью, используемой в качестве держалки. У детей с фимозом выполняли пластику крайней плоти – выделение ущемляющего кольца по верхней и нижней границе острым путём и циркулярное иссечение крайней плоти. Мобилизовали кожу, освобождали ствол полового члена от эмбриональных сращений до основания. На 5 и 7 часах условного циферблата по



Рис. 5. СПЧ у мальчика Т., 10 лет, с предшествующим обрезанием (trapped penis) в периоде новорожденности.

Fig. 5. HP in boy T., aged 10, with previous circumcision (trapped penis) at his newborn age.



Рис. 6. Вид полового члена того же ребёнка после операции.

Fig. 6. View of penis of the same child after surgery.



Рис. 7. Вид полового члена того же ребёнка на 10-е сутки после операции.

Fig. 7. View of penis of the same child on day 10 after surgery.



Фот. 8. Первичный СПЧ у ребёнка М., 3 лет
Fig. 8. Primary HP in child M., 3 years old.



Рис. 9. Вид полового члена у того же ребёнка после операции.

Fig. 9. View of penis of the same child after surgery.



Рис. 10. Отёк крайней плоти через 2 нед после операции.

Fig. 10. Foreskin edema in 2 weeks after surgery.

вентральной поверхности фиксировали кожу у основания полового члена внутрикожными швами нерассасывающейся монофиламентной нитью (Prolene) к белочной оболочке. Кожную рану ушивали отдельными швами ПДС (ПГА) 5 «0». В дистальном отделе стволовой части полового члена производили вертикальные разрезы длиной 5–6 мм через всю толщу кожи перемещённой крайней плоти (2 на волярной поверхности на 4–5 и 7–8 часах условного циферблата, 2 на дорзальной поверхности на 2 и 10 часах условного циферблата). Края раны тупо разводили зажимом до обнажения белочной оболочки полового члена. Далее накладывали узловые швы рассасывающейся нитью PDS 5 «0» через белочную оболочку и кожу, фиксируя её и предотвращая дистальное смещение (рис. 3, 4).

В настоящее время при необходимости полной мобилизации полового члена от сращений дополняем циркулярный разрез срединным вентральным до середины мошонки, проводим фиксацию не только пенокротального (на 5 и 7 часах), но и пубопенильного угла (3 швами) нерассасывающейся нитью, после чего выполняем кожную пластику с нанесением насечек для предупреждения дистального смещения препуция (рис. 5–7).

В послеоперационном периоде дети получали антибиотикотерапию препаратами цефалоспоринового ряда и местное лечение, по показаниям на 3–4 дня устанавливали уретральный катетер.

Результаты

Осложнений хирургического лечения СПЧ не было (рис. 8, 9).

В ближайшем послеоперационном периоде у ряда детей отмечался отёк крайней плоти, который самостоятельно разрешился через 2–3 нед (рис. 10). Рецидива УПЧ в отдалённом (через 1–3 года) периоде не было.

Проведено статистическое сравнение с определением среднего возраста и результатов лечения у двух групп детей: с первичным УПЧ и с УПЧ в результате избыточного развития препубического жира. Данные обработаны с помощью программы STATISTICA 12, определялись среднее арифметическое значение, среднеквадратичное отклонение ($M \pm \sigma$).

Обсуждение

Половое развитие – это генетически и гормонально контролируемый процесс, который начинается непосредственно при зачатии с установления хромосомного пола (XX или XY) и через экспрессию определённых генов продолжается с образованием гонад (яичек или яичников). Если микропенис обычно определяется как нормально сформированный пенис, который имеет растянутую длину полового члена по крайней мере на 2,5 δ ниже среднего значения для возраста пациента, то у детей с СПЧ половой член соответствует возрастным размерам [1].

В формировании СПЧ большую роль играет так называемая фасциальная слабость. В анатомии полового члена присутствуют ареолярные структуры, известные как поверхностная фасция полового члена (фасция Колеса) и глубокая фасция полового члена (фасция Бака). Поверхностная фасция полового члена, также называемая фасцией Дартоса, образует тонкую цилиндрическую оболочку, свободно прикрепленную к коже и лежащей более глубокой фасции; она переходит в крайнюю плоть и фиксируется к основанию головки полового члена в области венечной борозды. У основания полового члена фасция Дартоса соединяется с более гладкими мышечными волокнами и плотно прилегает к коже стенки мошонки, образуя хорошо выраженный пенокротальный угол. Глубокая фасция полового члена крепится к белочной оболочке. Это соединение между фасциальными слоями и кожей позволяет свободно перемещаться коже по более глубоким структурам полового члена. На уровне лобкового симфиза жировой слой, известный как фасция Кампера, покрывает поверхностную фасцию (фасция Скарпа), которая прилегает к глубокой фасции. Причиной СПЧ является слабость примыкания листков поверхностной и глубокой фасций у основания полового члена, что приводит к смещению кожи в дистальном направлении, а также избыток надлобкового жира у подростков, растягивающий кожу и скрывающий половой член. Так Crawford в 1977 г. разделил в своей классификации СПЧ на 2 подтипа: полный – в результате поверхностной фасциальной слабости, которая обычно нуждается в хирургической коррекции, и частичный – у подростков с локализованным надлобковым ожирением,

которое может измениться с ростом ребёнка [1].

Кроме того, выделяют мегапрепуций, описанный O'Brien et al. в 1994 г., при котором инфрапрепуциальная кожа отрывается от прикрепления к глубокой фасции из-за необычайно громоздкой препуциальной ткани.

Перепопчатый пенис является результатом смещения пенокротального угла.

И, наконец, «пойманный в ловушку» половой член это – приобретённая форма СПЧ после обрезания, когда образуется круговой рубец дистальнее или на уровне головки, при этом половой член оказывается внутри рубца, встроеного в предлобковый жир или мошонку [1].

На основании обзора литературных данных, СПЧ возможно классифицировать следующим образом: врождённый – первичный СПЧ, мегапрепуций, вторичный СПЧ на фоне лобкового ожирения, перепопчатый, члено-мошоночная транспозиция (при гипоспадии и аноректальной мальформации) и приобретённый (после обрезания). Также СПЧ может быть при больших двухсторонних пахово-мошоночных грыжах и гидроцеле.

Клинических проявлений при СПЧ, как правило, нет или они обусловлены фимозом и могут включать рецидивирующие баланопоститы, дизурические расстройства. Поводом для обращения за медицинской помощью является желание родителей получить косметический результат и устранить психологический дискомфорт пациентов.

Основным источником споров является вопрос о том, следует ли проводить раннюю хирургическую операцию при врождённом СПЧ в детском возрасте. Многие детские урологи считают, что хирургическое вмешательство следует проводить вскоре после подтверждения диагноза. Это позволит избежать пагубного влияния СПЧ на сексуальное психологическое развитие. У детей с СПЧ могут развиваться баланит, инфекции мочевыводящих путей, нарушения мочеиспускания, трудности гигиены, психологическая тревожность и эректильная дисфункция [7]. A. Valioulis et al. считают, что оперировать врождённый СПЧ следует с 3-летнего возраста [8]. Другой источник разногласий заключается в том, следует ли выполнять операцию у детей с СПЧ и ожирением, так как проблема может разрешиться после потери веса. В чём авторы единодушны: при выборе тактики лечения не должно выполняться обрезание крайней плоти, так как это приведёт к визуальному укорочению или практически отсутствию полового члена, отрицательно влияя на его развитие.

Техника операции различна у разных авторов, однако ключевые моменты едины: рассечение стенозированной ущемляющего кольца крайней плоти, декутанализация, удаление излишков подкожной ткани, супрапубикального жира, формирование двух углов (пеноскротального и пенокубического), реконструкция и фиксация кожи у основания.

Для лечения УПЧ предложено множество различных методов коррекции, имеющих свои преимущества и недостатки [4, 6, 9].

Оригинальный способ отличается тем, что после высвобождения кавернозных и спонгиозных тел и удлине-

ния видимой части ствола полового члена, фиксации кожи в области члено-мошоночного угла и укрытия дефекта стволового отдела полового члена, наносятся насечки по всей поверхности (2 на вентральной и 2 на дорзальной), через которые кожу подшивают к белочной оболочке ствола с целью фиксации крайней плоти и предупреждения её повторного дистального смещения. Из ранних послеоперационных осложнений отмечался отёк крайней плоти, самостоятельно купировавшийся. Отдалённых осложнений не наблюдалось.

Заключение

Таким образом, сроки оперативного вмешательства зависят от вида СПЧ. У пациентов с врождённым первичным СПЧ используется раннее хирургическое вмешательство, при вторичном СПЧ у подростков подход к оперативному вмешательству определяется степенью визуализации полового члена, психологическим дискомфортом пациента и отсутствием значимого клинического эффекта при использовании консервативных мер. Средний возраст детей с первичным УПЧ составил 3 года, с УПЧ на фоне лобкового ожирения – 12 лет. При выполнении оперативного пособия дополнительное использование насечек с прошиванием с целью фиксации кожи крайней плоти позволяет предотвратить её дистальное смещение.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 1–3, 7–9 см. в References)

1. Рудин Ю.Э., Осипова А.И. Опыт оперативного лечения скрытого полового члена у детей. *Урология*. 2003; (2): 38-9.
2. Киреева Н.Б., Тибилов А.З., Гудкова М.П., Киреева О.А. Способ хирургического лечения утопленного полового члена у мальчиков. *Бюллетень*. 2020; (22): 1-10.
3. Мельникова С.А., Цап Н.А., Федорова Н.П., Комарова С.Ю. Особенности хирургической техники при лечении скрытого полового члена у детей. *Детская хирургия*. 2010; (4): 13-7.

REFERENCES

1. Cimador M., Catalano P., Ortolano R., Giuffre M. The inconspicuous penis in children. *Nature Reviews/Urology*. 2015; (12): 205-15.
2. Srinivasan A.K., Lane S. Palmer, and Jeffrey S. Palmer Inconspicuous Penis. *The Scientific World Journal*. 2011; (11): 2559-64.
3. Bergeson, P.S., Hopkin, R.J., Bailey, R.B., McGill, L.C., Piatt J.P. The inconspicuous penis. *Pediatrics*. 1993; 92 (6): 794-99.
4. Rudin Yu.E., Osipova A.I. Experience of surgical treatment of the hidden penis in children. *Urologiya*. 2003; (2): 38-9. (in Russian)
5. Kireeva N.B., Tibilov A.Z., Gudkova M.P., Kireeva O.A. A method of surgical treatment of a drowned penis in boys. *Byulleten*. 2020; (22): 1-10. (in Russian)
6. Mel'nikova S.A., Czap N.A., Fedorova N.P., Komarova S.Yu. Features of surgical technique in the treatment of the hidden penis in children. *Detskaya khirurgiya*. 2010; (4): 13-7. (in Russian)
7. Wenliang Ge, Xiao Zhu, Yunzhao Xu, Yuehua Chen, Jian Wang Therapeutic effects of modified Devine surgery for concealed penis in children. *Asian Journal of Surgery*. 2019; (42): 356-61.
8. Valioulis A., Kallergis I.C., Ioannidou D.C. Correction of concealed penis with preservation of the prepuce. *J. Pediatr Urol*. 2015; 11(5): 259.
9. Radhakrishnan J., Razzaq A., Manickam K. Concealed penis. *Pediatr. Surg. Int*. 2002; (18): 668-69.

ОБЗОРЫ

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2021

Коротеев В.В.¹, Крестьяшин В.М.^{1,2}, Выборнов Д.Ю.^{1,2}, Тарасов Н.И.¹, Семенов А.В.², Горелова П.А.², Карлова Н.А.²**Осложнения в хирургии идиопатического сколиоза у детей**¹ГБУЗ города Москвы «Детская городская клиническая больница имени Н.Ф. Филатова Департамента здравоохранения города Москвы» Департамента здравоохранения г. Москвы, 123001, Москва, Россия;²ФГАОУ ВО «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 117997, Москва, Россия

Введение. В современной литературе до сих пор остаются споры о причинах наиболее часто встречающихся осложнений после операций по поводу юношеского идиопатического сколиоза и факторов риска их возникновения. Принимая во внимание растущие возможности стационаров по сокращению периода стационарного лечения в послеоперационном периоде, возникла насущная необходимость в знании лечащими врачами основных типов осложнений хирургии юношеского идиопатического сколиоза, а также факторов риска их возникновения, для точного прогнозирования и применения индивидуального подхода к ведению больных в послеоперационный период.

Материал и методы. Был проведен анализ литературы по ключевым словам в базах данных Pubmed, Medline, Google Scholar по теме осложненной хирургической коррекции юношеского идиопатического сколиоза у детей.

Результаты. По результатам обзора литературы подробно описаны две большие группы послеоперационных осложнений: общесоматические и неврологические. Помимо основных наиболее часто встречающихся осложнений описаны и более редкие, к которым относятся синдром верхней брыжеечной артерии и отдаленные глубокие инфекции.

Заключение. За последнее двадцатилетие частота послеоперационных осложнений при хирургической коррекции сколиотических деформаций значительно снизилась. Учитывая данные из различных работ, можно сделать вывод, что общий уровень осложнений уменьшился с 5,7% (2000–2003 гг.) до 4,95% (2004–2007 гг.) и затем еще до 0,98% (2013–2016 гг.). Несмотря на общее снижение частоты осложнений, последние всё равно остаются проблемой для клиницистов. К основным факторам риска возникновения осложнений можно отнести наличие сопутствующей почечной патологии у пациента, большой объём операционной кровопотери, значительное увеличение времени анестезии и операционного вмешательства; применение конструкций из нержавеющей стали, применение переднего или комбинированного оперативного доступа; отказ от применения интраоперационного нейромониторинга.

Ключевые слова: идиопатический сколиоз; осложнения хирургического лечения идиопатического сколиоза; осложнения; дети; обзор

Для цитирования: Коротеев В.В., Крестьяшин В.М., Выборнов Д.Ю., Тарасов Н.И., Семенов А.В., Горелова П.А., Карлова Н.А. Осложнения в хирургии идиопатического сколиоза у детей. *Детская хирургия*. 2021; 25(4): 254-259.

DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-254-259>

Для корреспонденции: Семенов Андрей Всеволодович, аспирант 2-го года обучения кафедры детской хирургии ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова МЗ РФ, 117997, Москва. E-mail: dru4elos@gmail.com

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Коротеев В.В., Тарасов Н.И. – финальный отбор публикаций, формирование выводов, консультирование по оперативным методикам лечения заболевания; Крестьяшин В.М., Выборнов Д.Ю. – концепция и дизайн исследования, руководство над проведением исследования и написанием текста, консультирование по оперативным методикам лечения заболевания, редактирование; Семенов А.В., Горелова П.А., Карлова Н.А. – дизайн исследования, поиск литературы, отбор и анализ публикаций, статистическая обработка, описание результатов, формирование выводов, написание текста. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 15 марта 2021

Принята в печать 05 июня 2021

Koroteev V.V.¹, Krestyashin V.M.^{1,2}, Vybornov D.Yu.^{1,2}, Tarasov N.I.¹, Semenov A.V.², Gorelova P.A.², Karlova N.A.²**Complications of surgical treatment of idiopathic scoliosis in adolescents**¹Filatov Municipal Children Hospital, Moscow, 123001, Russia;²Pirogov Russian National Research Medical University, Moscow, 117997, Russia

Introduction. In modern literature, there are still debates on causes of the most common complications after surgeries for idiopathic scoliosis in adolescents and their risk factors. Currently, there are growing potentials to reduce the length of patients' postoperative stay in hospitals, but it arises the need for attending physicians to know better the main types of complications of juvenile idiopathic scoliosis after surgery, their risk factors so as to predict and avoid them, to develop an individual program for patient's management in the postoperative period, especially for patients from the risk group.

Material and methods. Literature search was done in databases Pubmed, Medline, Google Scholar, using key words, on complications of surgical correction of juvenile idiopathic scoliosis.

Results. On analyzing the obtained literature data, two large groups of postoperative complications were described in details: somatic and neurological. In addition to most common complications, some rare ones are described too which include superior mesenteric artery syndrome and distant deep infections.

Conclusion. Over the past twenty years, the incidence of postoperative complications after surgical correction of scoliotic deformities has significantly decreased. When analyzing findings of various trials, it can be concluded that the overall complication rate decreased in 2004-2007 from 5.7% (2000-2003) to 4.95% and then to 0.98% (2013-2016). Despite the general decrease in the incidence of complications, the latter still remain a problem for clinicians. The basic risk factors for such complications are: concomitant renal pathology, large volume of surgical blood loss, significant increase of exposure to anesthesia and surgical intervention, application of stainless steel constructions, anterior or combined surgical access, refusal of intraoperative neuromonitoring.

Key words: idiopathic scoliosis; surgical complications; adolescents; AIS; review

For citation: Koroteev V.V., Krestianshin V.M., Vybornov D.Yu., Tarasov N.I., Semenov A.V., Gorelova P.A., Karlova N.A. Complications of surgical treatment of idiopathic scoliosis in adolescents. *Deitskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 254-259. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-254-259> (In Russian)

For correspondence: Andrey V. Semenov, MD, second-year post-graduate, chair of pediatric surgery at the Pirogov Russian National Research Medical University, Moscow, 117997, Russia. E-mail: dru4elos@gmail.com

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: Koroteev V.V., Tarasov N.I. – final selection of publications, drawing conclusions, consulting on operational methods of treatment of the disease; Krestianshin V.M., Vybornov D.Y. – the concept and design of the study, guidance on conducting research and writing a text, consulting on operational methods of treating the disease, editing; Semenov A.V., Gorelova P.A., Karlova N.A. – study design, literature search, selection and analysis of publications, statistical processing, description of results, drawing conclusions, writing a text. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: March 05, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

Развитие современной хирургии юношеского идиопатического сколиоза (ЮИС) за последние 20 лет позволило снизить общее количество осложнений после операций на позвоночнике [1], что связано, в основном, с применением современных транспедикулярных конструкций при выполнении наиболее частой операции при ЮИС – задней стабилизации с использованием транспедикулярной конструкции [2]. С приходом эры транспедикулярной фиксации (с 1997 по 2012 г.) количество устанавливаемых дорсальных конструкций, по данным ряда авторов, выросло с 63,4 до 91,3% среди всех возможных доступов при оперативном лечении сколиозов [3].

Несмотря на отработанную годами технику оперативных вмешательств и высокотехнологичное современное оборудование, ранние и поздние отдаленные осложнения остаются серьезной проблемой и приводят к увеличению времени нахождения ребенка в стационаре [4], ухудшению качества жизни, а иногда – к необходимости выполнения повторных операций [5]. При этом в литературе не встречаются практические рекомендации по наблюдению пациентов в отдаленном послеоперационном периоде, а также тактики для их предотвращения на этапах предоперационной подготовки и оперативного вмешательства. Подготовка обзора литературы, посвященного послеоперационным осложнениям и факторам риска их возникновения, продиктована практической необходимостью для определения подхода к пред-, интра- и послеоперационному ведению пациентов с идиопатическим сколиозом.

Материал и методы

Был проведен анализ литературы по теме осложнений хирургической коррекции ЮИС у детей. Поиск проводился по базам данных PubMed, MedLine, Google Scholar по ключевым словам «adolescent idiopathic scoliosis AND surgery AND complications», а также в русскоязычной литературе по ключевым словам «юношеский идиопатический сколиоз, осложнения, хирургия юношеского идиопатического сколиоза». В связи с необходимостью охвата большого количества статистических данных для наиболее полного формирования понятия о частоте, структуре осложнений хирургической коррекции ЮИС, а также факторов риска, в настоящий обзор литературы было решено включить все статьи с выборкой более

100 пациентов за последние 20 лет. В настоящий обзор включены суммарно 31 статья, из них 2 – систематические обзоры, 3 – обзорные статьи, 26 – исследования 3-го и 4-го уровней доказательности.

Результаты

В докладе SRS (scoliosis research society – общество по изучению идиопатического сколиоза) по статистике осложнений за 2000-2003 гг., который базируется на анализе результатов оперативного лечения 6334 детей, опубликованы данные по частоте послеоперационных осложнений при применении комбинированных конструкций (10,2%) по сравнению с дорсальной (5,1%) и вентральной (5,2%). Авторы сообщают о превалировании респираторных осложнений (1,6%) и осложнений, ассоциированных с конструкцией (1,4%), тогда как остальные виды осложнений, классифицируемые в обзоре (спонтанные ранения дурального мешка, неврологические, гематологические, раневые инфекции, другие), разделили между собой остальные 2,7% осложнений. Суммарно авторы сообщили о частоте осложнений, равной 5,7% [6].

Из всех возможных осложнений, встречающихся при дорсальной стабилизации позвоночника при коррекции ЮИС, неврологические осложнения могут принести наибольший вред – преимущественно в связи со снижением качества жизни. Поэтому в литературе принято выделять последние в отдельный раздел осложнений, а все остальные называть общепринятым понятием «не неврологические осложнения». Распространенность таких осложнений у пациентов с идиопатическим сколиозом в послеоперационном периоде составляет около 15,4%, из них частота респираторных осложнений – 1,42%, обильных кровотечений – 0,85%, развитие раневых инфекций – 0,71%. Возраст, пол, наличие сопутствующих заболеваний сердечно-сосудистой и дыхательной систем, а также хирургические подходы никак не коррелируют с повышением частоты развития осложнений [7].

Fu K.-M.G. и соавт. провели крупное исследование осложнений в спинальной хирургии у детей, используя базу данных хирургов общества SRS. 19642 пациента из этого исследования были прооперированы по поводу сколиоза. Общее количество осложнений у данной группы пациентов составило 8,2%, среди самых частых были раневые инфекции (2,7%), респираторные осложнения (0,9%),

ранения дурального мешка (0,5%) и гематомы (0,4%). Прямую и статистически значимую зависимость продемонстрировали следующие факторы: наличие сопутствующей почечной патологии у пациента, большой объём операционной кровопотери, значительное увеличение времени анестезии и операционного вмешательства [8].

В масштабном метаанализе с общей выборкой из 1565 пациентов, где проводилось сравнение эффективности и безопасности дорсального инструментария разных типов, у 1,9% пациентов был выявлен псевдоартроз, который чаще встречается при использовании дистрактора Харрингтона [2]. Суммарно у 3,6% больных отмечались инфекционные осложнения, при этом в подгруппе дистрактора Харрингтона – до 5,5%, а в подгруппе транспедикулярных конструкций – до 1,18%. Частота повторных операций составила 7,2%, чаще всего они выполнялись после установки дистрактора Харрингтона. Примечательно, что из 254 пациентов с транспедикулярными фиксаторами ни одному не потребовалось проведения повторной операции. Неврологические осложнения зафиксированы у 2 из 1136 (0,17%) пациентов, у которых в раннем послеоперационном периоде после установки конструкции CDI отмечался односторонний парез нижних конечностей.

В масштабном исследовании с выборкой 36 335 пациентов осложненный после хирургических вмешательств по коррекции ЮИС суммарная частота послеоперационных осложнений составила 7,6% [5]. При анализе подгрупп выявлено, что для задних, передних и комбинированных оперативных доступов показатели частоты осложнений были 6, 7, 10 и 19,8% соответственно. Самыми распространёнными из них были острая дыхательная недостаточность (3,4%), реинтубация (1,3%), имплант-ассоциированные осложнения (1,1%), кардиоваскулярные осложнения (0,9%) и пневмония (0,8%). Развитие таких серьёзных осложнений, как смерть, ДВС-синдром, сепсис, повреждение спинного мозга и корешков нервных стволов, лёгочная эмболия, тромбозы и прочее встречались с частотой до 0,2% для каждого вышеперечисленного осложнения. К группам риска по осложнениям отнесли пациентов молодого возраста, мужского пола, лиц с сопутствующими заболеваниями (анемия, гипертония, гипертиреоз). В свою очередь выявлено, что длина инструментированного сегмента позвоночника не была связана с развитием осложнений.

Для коррекции крайне тяжёлых форм идиопатического сколиоза общепринятой мерой является многоуровневая дискэктомия в сочетании с корпородезом на вершине сколиотической дуги. Однако данная методика не является совершенной, так как после её применения может сохраняться ригидность основной дуги. Виссарионов С.В. и др. в своей работе приводят аргументы в пользу клиновидной резекции тела позвонка, являющегося вершиной искривления, с сохранением замыкательных пластинок, что помогает увеличить шансы успешного исправления деформации [9].

В качестве одного из факторов риска возникновения осложнений рассматривали метод интраоперационной навигации при установке транспедикулярных винтов. Авторы одного из исследований пришли к выводу, что при интраоперационной КТ-навигации частота осложнений значительно снижается по сравнению с методами установки винтов без 3D-навигации – с 0–1,7 до 0%. Однако в следующем исследовании (систематический обзор) авторы выявили отсутствие разницы по частоте возникновения осложнений между двумя вышеуказанными группами, а также увеличение времени операции при использовании КТ-навигации [10].

Наши авторы считают, что в процессе предоперационной подготовки необходимо выполнять комплекс процедур для увеличения мобильности деформированного позвоночника: корригирующие упражнения, направленные на увеличение фронтальной и ротационной мобильности позвоночника, вытяжение на наклонной плоскости, вертикальное вытяжение постепенно до полного вися, вытяжение на тракционном столе, приёмы мобилизирующей мануальной терапии. Это может помочь предотвратить осложнения для пациентов с тяжёлой степенью деформации, например резкое перерастяжение спинного мозга и корешков после коррекционного манёвра. [11]

По данным исследования самой большой когорты пациентов [1], в котором участвовали 84 320 пациентов с идиопатическим сколиозом на протяжении 13 лет, из них у 1268 (1,5%) были выявлены послеоперационные осложнения, средний уровень смертности в послеоперационном периоде составил 0,014%. Чаще всего отмечались хирургические инфекции (0,52%), неврологические осложнения (0,35%) и осложнения, связанные с имплантатами (неправильное расположение имплантата, потеря костной фиксации и поломка импланта (0,20%). Исследователями была обнаружена небольшая, но статистически значимая корреляция между развитием инфекционного процесса и степенью первичной деформации, а также интраоперационной кровопотери. Самыми частыми возбудителями для инфекционных процессов являлись грамположительные бактерии, наиболее частый из которых – *MSSA*, что могло быть связано с доброкачественным течением и интактной раной. Авторами был сделан вывод, что общий уровень осложнений в период с 2004 по 2007 г. значительно снизился с 4,95 до 0,98%, в период с 2013 по 2016 г. наибольшее снижение (на 87,4%) произошло среди осложнений, связанных с имплантатами, и на 33,9% – уменьшение частоты развития впервые выявленных неврологических патологий в послеоперационном периоде.

Неврологические осложнения как наиболее значимые и приводящие к резкому ухудшению качества жизни требуют отдельного обсуждения. Они включают в себя большой спектр расстройств: от транзиторной позиционной нейропатии из-за нахождения в позе на животе с отведёнными верхними конечностями до необратимого неврологического дефицита в результате повреждения спинного мозга [12]. В специальном докладе общества SRS, посвящённом частоте неврологических осложнений в хирургии сколиоза, опубликованы данные о неврологических осложнениях. Последние встречались у 86 из 11 741 пациента, оперированных по поводу ЮИС. Общая частота таких осложнений составила 0,73%, из них 0,43% относились к ранениям спинного мозга, а 0,31% – к ранениям корешков [13]. При этом в 4,7% случаев неврологический дефицит был невосстановим, частично восстановим в 46,8% случаев, и полностью восстановился у 47,1% детей, получивших различные неврологические осложнения. Авторы настоятельно рекомендуют использование интраоперационного нейромониторинга всем хирургам, даже имеющим большой опыт в установке транспедикулярных конструкций, так как повреждение спинного мозга и его корешков может быть не только прямым в результате неправильно установленного винта, так и ишемическим из-за интраоперационной гипотонии, а также в результате перерастяжения спинного мозга и корешков после коррекционного манёвра [12].

Одним из отдалённых осложнений, требующих хирургического вмешательства, является отдалённая глубокая инфекция. В литературе существует множество указаний на сроки после оперативного вмешательства, когда

инфекция может считаться отдалённой, но большинство авторов придерживаются срока в 12 мес (Heggeness, Esses, Errico, & Yuan, 1993; Richards, 1995; Soultanis, Mantelos, Pagiatakis, & Soucacos, 2003; Di Silvestre, Bakaloudis, Loli, & Giacomini, 2011).

Ранее считалось, что происходит коррозия металла и фреттинг (высвобождение микрочастиц в результате микротрени элементов конструкции в месте фиксации), который в свою очередь ведёт к асептическому воспалению и формированию грануляций. Однако позже была доказана роль определённых микроорганизмов в этиологии поздних инфекций: *Propionibacterium acne*, *Staphylococcus epidermidis*, *St. Aureus* и другие [17,18].

Отмечается достоверно более высокая частота возникновения отдалённых инфекций при применении конструкций из нержавеющей стали (4,56%), чем из сплавов титана – 1,33% [17]. Комплексное лечение глубокой инфекции в месте установки конструкции состоит из вскрытия инфицированной полости и тщательного её дренирования, а также в применении стандартной схемы антибиотикотерапии, используемой при инфицировании конструкций: посев + внутривенная антибиотикотерапия в течение двух дней с последующей коррекцией терапии и переходом на пероральную антибиотикотерапию в течение 4 нед (Clark & Shufflebarger, 1999; B.R. Richards & Emara, 2001). Однако очень часто лечение по вышеописанной схеме даёт лишь временный эффект, после чего происходит рецидив инфекции, который, по мнению многих авторов (Clark & Shufflebarger, 1999; B.R. Richards & Emara, 2001; Soultanis, Mantelos, Pagiatakis, & Soucacos, 2003), связан с формированием бактериями гликокаликсовой биопленки, мешающей воздействию антибиотиков на колонию, расположенную непосредственно на металлоконструкции. Данный факт был позже подтверждён исследованием биоплёнок бактерий *S. Aureus* и *S. Epydermidis* на кроликах с использованием различных сплавов металлов: бактерии образовывали плёнки в значительно большем количестве на нержавеющей стали по сравнению с титановым сплавом [20]. Единственно возможным вариантом в данной ситуации является полный демонтаж конструкции [17], так как при сохранении конструкции шансы рецидива инфекции составляют примерно 50%, что было показано в исследовании Ho, Skaggs, Weiss, & Tolo (2007). Авторы также сообщили о том, что в 47% случаев был высеян коагулазонегативный стафилококк. Знание этого факта позволяет назначать этиотропную эмпирическую терапию с большой эффективностью.

Среди угрожающих жизни осложнений отдельно следует упомянуть синдром верхней брыжеечной артерии, возникающий, по разным данным, с частотой от 1 до 7,6% (Tsirikos & Jeans, 2005; Hod-Feins и соавт., 2007; Zhu & Qiu, 2005; Braun, Hedden, & Howard, 2006; Kim и соавт., 2008). Смертность от синдрома верхней брыжеечной артерии может составлять до 33% [27]. Синдром возникает преимущественно у детей с индексом массы тела ниже 20, астеников. Значительно чаще данное осложнение связано с удлинением продольного размера позвоночного столба в результате оперативной коррекции сколиоза [26]. Патогенез заключается в сдавлении нижней горизонтальной части двенадцатиперстной кишки в аортomesентеральном «пинцете». Это происходит в результате малого угла отхождения верхней брыжеечной артерии от аорты (в норме от 38 до 65°), который, в свою очередь, зависит от объёма жировой подушки верхней брыжеечной артерии [28]. Синдром клинически представлен рвотой, иногда с примесью желчи, тошнотой, запором, анорексией и абдоминальными болями, имеющими характер

колик. Рентгенологически при исследовании с барием можно отметить дуоденальную непроходимость, а золотым стандартом диагностики является ангиография [29]. Синдром верхней брыжеечной артерии можно вести консервативно, проводя декомпрессию желудка, коррекцию водно-электролитного баланса путем внутривенных инфузий, осуществляя адекватное питание внутривенно или энтерально [30].

Крайне мало исследований посвящено тактике послеоперационного наблюдения пациентов после операций на позвоночнике по поводу ЮИС. В настоящее время большинство авторов наблюдают пациентов после коррекции деформации позвоночника в течение не менее 2 лет, однако чётко обоснованных сроков наблюдения в литературе не встречается. Авторы одного из исследований проводили контроль за отдалёнными результатами, осуществляя осмотры через 2 года и через 5 лет после оперативного вмешательства [31]. На основании отсутствия разницы между величиной послеоперационного угла Кобба основной деформации, измеренной соответственно через 2 года и 5 лет после операции, авторы делают вывод, что проводить контрольные осмотры через 5 лет нецелесообразно. Также не отмечалось разницы в общем самочувствии на основании опросников. Однако у троих пациентов выявили отдалённые осложнения после коррекции, но все они обратились за медицинской помощью самостоятельно. У первого пациента появились боли в поясничной области (через 21 мес после оперативного вмешательства), у второго выявили глубокую раневую инфекцию с образованием свища, соединяющегося с позвоночником, развившуюся спустя 24 мес, ещё у одного – перелом стержня из титанового сплава без смещения. В исследовании Н.Н. Надирова и соавт. говорится, что пациентов после коррекции грудного идиопатического сколиоза необходимо наблюдать в течение 1–3 лет. Потеря коррекции в срок наблюдения составила 0–5%, стоит отметить, что все эти пациенты имели угол деформации от 100 до 114° по Cobb и ригидную грудную дугу искривления (мобильность 11%) [32].

Заключение

На основании проанализированных исследований можно сделать выводы, что за последнее двадцатилетие частота послеоперационных осложнений при хирургической коррекции сколиотических деформаций значительно снизилась. Учитывая данные из различных работ, можно сделать вывод, что общий уровень осложнений уменьшился с 5,7% (2000–2003 гг.) до 4,95% (2004–2007 гг.) и затем ещё до 0,98% (2013–2016 гг.). Наибольшее снижение (на 87,4%) произошло среди осложнений, связанных с имплантатами, и на 33,9% – уменьшение частоты развития впервые выявленных неврологических патологий в послеоперационном периоде. [1,6] Также можно утверждать, что широкое применение транспедикулярных конструкций значительно снизило число осложнений. Все послеоперационные осложнения можно разделить на две большие группы: не неврологические и неврологические. К основным не неврологическим осложнениям относятся: респираторные осложнения, развитие раневых инфекций, псевдоартроз, синдром верхней брыжеечной артерии. Частота респираторных осложнений составляет 0,9–1,42%, а частота развития раневой инфекции – 0,71%. Была доказана роль определённых микроорганизмов в этиологии поздних инфекций: *Propionibacterium acne*, *Staphylococcus epidermidis*, *St. Aureus* и другие. В 47% случаев отдалённые глубокие инфекции вызываются коагулазонегативным стафилококком. Особые

сложности при лечении раневых инфекций обусловлены их частым рецидивированием, которое связано с формированием бактериями гликокаликсной биопленки, мешающей воздействию антибиотиков на колонию, расположенную непосредственно на металлоконструкции. Синдром верхней брыжеечной артерии, по разным источникам, встречается в 1–7,6% и обусловлен формированием аорто-мезентериального «пинцета». Смертность от синдрома верхней брыжеечной артерии может составлять до 33% [7, 8, 16–19, 21–26]. К неврологическим осложнениям относят большой спектр патологических состояний: от транзиторной позиционной нейропатии, из-за нахождения в позе на животе с отведенными верхними конечностями, до необратимого неврологического дефицита в результате повреждения спинного мозга [12].

Среди доказанных факторов риска осложнений отмечают следующие:

1) наличие сопутствующей почечной патологии у пациента, большой объём операционной кровопотери, значительное увеличение времени анестезии и операционного вмешательства [8];

2) применение конструкций из нержавеющей стали, при которых значительно возрастает риск глубокой раневой инфекции (4,56%), из сплавов титана – 1,33% [17];

3) применение переднего или комбинированного оперативного доступа, при которых риск развития осложнений вырастает до 10,0 и 19,8% соответственно, в то время как при заднем доступе осложнения возникают в 6,7% случаев [5];

4) значительное удлинение продольного размера позвоночного столба в результате оперативной коррекции сколиоза, которое приводит к синдрому верхней брыжеечной артерии [26];

5) применение дистрактора Харрингтона: в таких случаях наиболее часто встречается псевдоартроз и инфекционные осложнения [2];

6) отказ от интраоперационного нейромониторинга при установке транспедикулярных конструкций, что может приводить к повреждениям спинного мозга и его корешков [12].

Практические рекомендации на основании настоящего обзора

Соблюдение всех технологических процессов установки конструкций, тщательное предоперационное планирование, индивидуальный подход к послеоперационному ведению и обязательное наблюдение детей, оперированных по поводу сколиотической деформации, как минимум в течение 2 лет после операции.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 1–8, 10, 12–31 см. в References)

9. Виссарионов С.В., Мурашко В.В., Кокушин Д.Н., Белянчиков С.М., Ермолович М.С. Хирургическое лечение пациента с тяжелым идиопатическим кифосколиозом грудной локализации. *Детская хирургия*. 2014; 18(5): 37–42.
11. Виссарионов С.В., Дроздецкий А.П. Тактика хирургического лечения детей с идиопатическим сколиозом грудной локализации. *Хирургия позвоночника*. 2010; 4: 25–9.
32. Надилов Н.Н., Белянчиков С.М., Кокушин Д.Н. Хирургическая коррекция деформации позвоночника у детей с идиопатическим сколиозом грудной локализации с применением современных технологий. *Детская хирургия*. 2016; 20(6): 287–91.

REFERENCES

1. Kwan K.Y.H. et al. Complications following surgery for adolescent idiopathic scoliosis over a 13-year period. *Bone Jt. J.* 2020; 102 B(4): 519–23.
2. Lykissas M.G. et al. Mid- to long-term outcomes in adolescent idiopathic scoliosis after instrumented posterior spinal fusion: A meta-analysis. *Spine (Phila. Pa. 1976)*. 2013; 38: 2. 113–19.
3. Vigneswaran H.T. et al. Surgical treatment of adolescent idiopathic scoliosis in the United States from 1997 to 2012: an analysis of 20,346 patients. *J. Neurosurg. Pediatr.* 2015; 16(3): 322–8.
4. Sultan A.A. et al. Predictors of extended length of hospital stay in adolescent idiopathic scoliosis patients undergoing posterior segmental instrumented fusion: An analysis of 407 surgeries performed at a large academic center. *Spine (Phila. Pa. 1976)*. Lippincott Williams and Wilkins, 2019; 44(10): 715–22.
5. De la Garza Ramos R. et al. Patient and operative factors associated with complications following adolescent idiopathic scoliosis surgery: an analysis of 36,335 patients from the Nationwide Inpatient Sample. *J. Neurosurg. Pediatr.* 2016; 18(6): 730–6.
6. Coe J.D. et al. Complications in Spinal Fusion for Adolescent Idiopathic Scoliosis in the New Millennium. A Report of the Scoliosis Research Society Morbidity and Mortality Committee. *Spine (Phila. Pa. 1976)*. 2006; 31(3): 345–9.
7. Carreon L.Y. et al. Non-neurologic complications following surgery for adolescent idiopathic scoliosis. *J. Bone Joint Surg. Am.* 2007; 89(11): 2427–32.
8. Fu K.-M.G. et al. Morbidity and mortality associated with spinal surgery in children: a review of the Scoliosis Research Society morbidity and mortality database. *J. Neurosurg. Pediatr.* 2011; 7(1): 37–41.
9. Vissarionov S.V., Murashko V.V., Kokushin D.N., Belyanchikov S.M., Ermolovich M.S. Surgical treatment of a patient with severe idiopathic chest kyphoscoliosis. *Detskaya Khirurgiya*. 2014; 5: 37–42. (in Russian)
10. Chan A. et al. Does image guidance decrease pedicle screw-related complications in surgical treatment of adolescent idiopathic scoliosis: a systematic review update and meta-analysis. *Eur. Spine J. Springer Berlin Heidelberg*. 2020; 29(4): 694–716.
11. Vissarionov S.V., Drozdetsky A.P. Surgical Approach to the Treatment of Children with Thoracic Idiopathic Scoliosis. *Hirurgiya Pozvonochnika*. 2010; (4): 25–9. (in Russian)
12. Murphy R.F., Mooney J.F., III. Complications following spine fusion for adolescent idiopathic scoliosis. *Curr. Rev. Musculoskelet. Med. Springer*. 2016; 9(4): 462–9.
13. Hamilton D.K. et al. Rates of New Neurological Deficit Associated With Spine Surgery Based on 108,419 Procedures. *Spine (Phila. Pa. 1976)*. 2011; 36(15): 1218–28.
14. Heggeness M.H. et al. Late infection of spinal instrumentation by hematogenous seeding. *Spine (Phila. Pa. 1976)*. 1993; 18(4): 492–6.
15. Richards B.S. Delayed infections following posterior spinal instrumentation for the treatment of idiopathic scoliosis. *J. Bone Joint Surg. Am.* 1995; 77(4): 524–9.
16. Soultanis K. et al. Late infection in patients with scoliosis treated with spinal instrumentation. *Clin. Orthop. Relat. Res.* 2003; 411: 116–23.
17. Di Silvestre M. et al. Late-developing infection following posterior fusion for adolescent idiopathic scoliosis. *Eur. Spine J. Springer*. 2011; 20(1): 121–7.
18. Richards B.R., Emara K.M. Delayed infections after posterior TSRH spinal instrumentation for idiopathic scoliosis: revisited. *Spine (Phila. Pa. 1976)*. 2001; 26(18): 1990–6.
19. Clark C.E., Shufflebarger H.L. Late-developing infection in instrumented idiopathic scoliosis. *Spine (Phila. Pa. 1976)*. 1999; 24(18): 1909–12.
20. Sheehan E. et al. Adhesion of Staphylococcus to orthopaedic metals, an in vivo study. *J. Orthop. Res. Wiley Subscription Services, Inc., A Wiley Company*. 2004; 22(1): 39–43.
21. Ho C. et al. Management of infection after instrumented posterior spine fusion in pediatric scoliosis. *Spine (Phila. Pa. 1976)*. 2007; 32(24): 2739–44.
22. Tsiirikos A.I., Jeans L.A. Superior mesenteric artery syndrome in children and adolescents with spine deformities undergoing corrective surgery. *J. Spinal Disord. Tech.* 2005; 18(3): 263–71.

23. Hod-Feins R. et al. Superior mesenteric artery syndrome after scoliosis repair surgery: a case study and reassessment of the syndrome's pathogenesis. *J. Pediatr. Orthop.* 2007; 16(5): 345–9.
24. Zhu Z.-Z., Qiu Y. Superior mesenteric artery syndrome following scoliosis surgery: its risk indicators and treatment strategy. *World J. Gastroenterol.* 2005; 11(21): 3307–10.
25. Braun S. V., Hedden D.M., Howard A. W. Superior Mesenteric Artery Syndrome Following Spinal Deformity Correction. *J. Bone Jt. Surg.* 2006; 88(10): 2252.
26. Kim J.Y. et al. Incidence and Risk Factors Associated with Superior Mesenteric Artery Syndrome following Surgical Correction of Scoliosis. *Asian Spine J. Korean Society of Spine Surgery.* 2008; 2(1): 27–33.
27. Boseker E.H. et al. Determination of "normal" thoracic kyphosis: a roentgenographic study of 121 "normal" children. *J. Pediatr. Orthop.* 2000; 20(6): 796–8.
28. Derrick J.R., Fadhli H.A. Surgical anatomy of the superior mesenteric artery. *Am. Surg.* 1965; 31: 545–7.
29. Gustafsson L. et al. Diagnosis and treatment of superior mesenteric artery syndrome. *Br. J. Surg.* 1984; 71(7): 499–501.
30. Lam D.J.L. et al. Superior mesenteric artery syndrome following surgery for adolescent idiopathic scoliosis. *J. Pediatr. Orthop.* 2014; 23(4): 312–8.
31. Mac-Thiong J.M. et al. Long-term follow-up after surgical treatment of adolescent idiopathic scoliosis using high-density pedicle screw constructs: Is 5-year routine visit required? *Eur. Spine J. Springer Berlin Heidelberg.* 2019; 28(6): 1296–300.
32. Nadirov N.N., Belyanchikov S.M., Kokushin D.N., Murashko V.V. Surgical correction of spinal deformity in children with idiopathic scoliosis of chest localization using modern technologies. *Detskaya Khirurgiya* 2016; 20(6): 287-91. (in Russian)

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2021

Каганцов И.М.^{1,2}, Дубров В.И.³, Сизонов В.В.^{4,5}, Баиров В.Г.¹, Сухоцкая А.А.¹

Агенезия полового члена (афаллия) у мальчиков

¹Институт перинатологии и педиатрии, ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр имени В.А. Алмазова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 197349, Санкт-Петербург, Россия;²ФГБОУ ВО «Сыктывкарский государственный университет имени Питирима Сорокина», 167001, Сыктывкар, Россия;³УЗ «2-я городская детская клиническая больница», 167000, Минск, Республика Беларусь;⁴ГБУ Ростовской области «Областная детская клиническая больница», 344015, Ростов-на-Дону, Россия;⁵ФГБОУ ВО «Ростовский государственный медицинский университет», 344022, Ростов-на-Дону, Россия

Введение. Агенезия полового члена (афаллия) – это крайне редкий врождённый порок, характеризующийся полным отсутствием полового члена у ребёнка с мужским кариотипом (46XY).

Материал. Проведён анализ литературы по ключевым словам в базах данных Pubmed и Medline.

Результаты. Афаллия, несмотря на редкость, является достаточно подробно и многогранно освещённым в медицинской литературе пороком развития. Частота афаллии оценивается как 1 случай на 10–40 миллионов рождённых мальчиков. Со временем агенезии полового члена с другими врождёнными аномалиями нередко приводит к гибели таких детей. В настоящее время считается, что данным пациентам должен быть оставлен их генетический мужской пол, поэтому в долгосрочной перспективе возникает сложная проблема выбора оптимального способа и возраста для создания неофаллоса и неоуретры.

Заключение. Редкость встречаемости афаллии обуславливает отсутствие публикаций с освещением отдалённых результатов фаллопластики как у детей, так и взрослых.

Ключевые слова: афаллия; агенезия полового члена; фаллопластика; обзор

Для цитирования: Каганцов И.М., Дубров В.И., Сизонов В.В., Баиров В.Г., Сухоцкая А.А. Агенезия полового члена (афаллия) у мальчиков. *Детская хирургия.* 2021; 25(4): 260-266. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-260-266>

Для корреспонденции: Илья Маркович Каганцов, доктор мед. наук, доцент; главный научный сотрудник НИЛ хирургии врождённой и наследственной патологии институт перинатологии и педиатрии, ФГБУ НМИЦ им. В.А. Алмазова МЗ РФ; профессор кафедры хирургии ФГБОУ ВО СГУ им. Питирима Сорокина, 197341, г. Санкт-Петербург. E-mail: ilkagan@rambler.ru

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Каганцов И.М. – концепция и дизайн обзора, сбор и анализ данных 40%, написание текста; Дубров В.И., Сизонов В.В. – концепция и дизайн обзора, сбор и анализ данных 20%, написание текста; Баиров В.Г., Сухоцкая А.А. – концепция и дизайн обзора, сбор и анализ данных 10%, написание текста. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 04 марта 2021

Принята в печать 05 июня 2021

Kagantsov I.M.^{1,2}, Dubrov V.I.³, Sizonov V.V.^{4,5}, Bairov V.G.¹, Sukhotskaya A.A.¹

Penile agenesis (afallia) in pueros

¹Institute of Perinatology and Pediatrics, Almazov National Medical Research Centre, St-Petersburg, 197349, Russia²Pitirim Sorokin Syktyvkar State University, Syktyvkar, 167001, Russia³2nd City Children's Clinical Hospital, Minsk, 167000, Republic of Belarus⁴Rostov-on-Don Regional Children's Clinical Hospital, Rostov-on-Don, 344015, Russia⁵Rostov State Medical University, Rostov-on-Don, 344022, Russia

Introduction. Penile agenesis (aphallia) is an extremely rare congenital defect characterized by the complete absence of the penis in a child with a male karyotype 46XY.

Material. The analysis of the literature on keywords in the Pubmed and Medline databases was carried out.

Results. The incidence of aphallia is estimated 1 out of 10-40 million newborn boys. Aphallia, in spite of its rarity, is a congenital defect which is thoroughly described in the medical literature. The combination of agenesis of the penis with other congenital anomalies often leads to death in such children. Currently, it is believed that these patients should be left with their genetic male sex, therefore, there is a difficult dilemma of choosing the optimal method and age for creating the neophallus and neourethra.

Conclusions. The rarity of the aphallia determines the lack of publications covering the long-term results of phalloplasty in both children and adults.

Key words: aphallia; penile agenesis; phalloplasty; review

For citation: Kagantsov I.M., Dubrov V.I., Sizonov V.V., Bairov V.G., Sukhotskaya A.A. Penile agenesis (afallia) in pueros. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 260-266. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-260-266> (In Russian)

For correspondence: Ilya M. Kagantsov, MD, Dr.Sc. (med), associate professor, chief researcher at the laboratory for surgical correction of congenital and hereditary pathologies at the Institute of Perinatology and Pediatrics in the Almazov National Medical Research Center; professor at department of surgery in the Pitirim Sorokin State University. 197341, St. Petersburg, Russia., E-mail: ilkagan@rambler.ru

Information about authors:

Kagantsov I.M., <https://orcid.org/0000-0002-3957-1615>;Dubrov V.I., <https://orcid.org/0000-0002-3705-1288>Sizonov V.V., <https://orcid.org/0000-0001-9145-8671>Bairov V.G., <https://orcid.org/0000-0002-8446-830X>

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: Kagantsov I.M. – text writing, review concept and design, data collection and analysis – 40%; Dubrov V.I., Sizonov V.V. – text writing, review concept and design, data collection and analysis – 20%; Bairov V.G., Sukhotskaya A.A. – text writing, review concept and design, data collection and analysis – 10%. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: March 04, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

Агенезия полового члена (афаллия) – это крайне редкий врождённый порок, характеризующийся полным отсутствием полового члена у ребенка с мужским кариотипом (46XY). Впервые об афаллии сообщил французский хирург Saviard в 1701 г. как о «Ребёнке, у которого не было жезла» (“Child who had no rod”), но подробное описание агенезии полового члена сделал Imminge в 1853 г. [1].

Частота встречаемости афаллии оценивается как 1 случай на 10–40 млн рождений мальчиков [2]. В мире описано около 100 случаев афаллии. В одном из последних обзоров, посвящённых афаллии и опубликованном в 2018 г., Gabler и соавт. также упоминают о 100 ранее описанных пациентах и анализируют 30 новых описаний афаллии, которые они встретили в 23 публикациях за последние 10 лет. При этом авторы из анализа исключили несколько работ по причине того, что их текст не был написан на английском языке. Ряд сообщений об афаллии был опубликован в последние три года [3–9]. Редкость встречаемости данного порока также подтверждается тем, что основная часть публикаций содержит описание одного клинического наблюдения, при этом зачастую пациент не получал лечения в связи с отказом от дальнейшего наблюдения, или сообщают о гибели новорождённых с афаллией в сочетании с несовместимыми с жизнью пороками развития. [10–13]. Таким образом, истинную частоту встречаемости афаллии на сегодня оценить не представляется возможным, при этом количество описанных случаев в мировой литературе находится в пределах 140 случаев.

Одним из открытий для нас было узнать, что в литературе встречается термин «женская афаллия». Изолированное отсутствие (агенезию) клитора впервые описали Vanelli с соавт. в 1978 г. [14]. В 2016 г. авторы из США описали девочку с тяжёлыми врождёнными пороками, в том числе с агенезией мочевого пузыря, клитора и малых половых губ, с двухсторонней тяжёлой дисплазией почек, потребовавшей перитонеального диализа при рождении и в 3 года трансплантации. Девочка имела нормальное строение яичников, матки, влагалище соединялось с stenozированным урогенитальным синусом, в который напрямую впадал левый мочеточник. Учитывая, что у данной пациентки порок сформировался аналогично, как при афаллии у мальчиков в сочетании с атрезией уретры, авторы сообщают, что это первый описанный случай агенезии клитора и малых половых губ («женской афаллии») в сочетании с тяжёлой дисплазией мочеполового тракта [15].

Этиология

Практически у всех зарегистрированных пациентов диагноз афаллии был установлен случайно и причина её возникновения в большинстве случаев не известна. В ряде работ указывается на воздействие потенциальных тератогенов на плод в ранние сроки беременности, таких как эстроген и прогестерон [16], этретинат [17], карбамазепин [18], алкоголь [2]. В большинстве случаев при афаллии определяется кариотип 46XY с нормальной выработкой половых гормонов и без нарушений, связанных с функцией гипофиза. Первое определение кариотипа у пациента с афаллией проведено Carter и соавт. в 1968 г. и с тех пор не было сообщений о задокументированных нарушениях в половых хромосомах у детей с агенезией полового члена [19]. Предположение о связи афаллии с наследственностью маловероятно. Koffler и соавт. описали афаллию у одного из моноамниотико-монохорионических близнецов. При этом мальчик с афаллией имел множественные пороки развития желудочно-кишечного тракта и аплазию почек с атрезией уретры не совме-

стимые с жизнью и погиб на 9-е сутки после рождения. Важно, что он не погиб внутриутробно и сразу после рождения, так как у него не развилась гипоплазия лёгочной ткани благодаря второму близнецу, обеспечившему нормальное количество амниотической жидкости. Второй мальчик из этой пары не имел врождённых пороков и на момент описания был здоровым 3-летним ребёнком [20]. Шестью годами позже авторами из Миниаполиса описан аналогичный случай у близнецов [21].

Эмбриология

Формирование наружных половых органов является комплексным процессом. С 4-й по 7-ю неделю гестации формируется индифферентный в половом отношении генитальный бугорок (genital tubercle). Между 7-й и 8-й неделями под воздействием гена *SRY* начинают формироваться мужские гонады, что сопровождается продукцией тестостерона. Первым признаком маскулинизации является увеличение расстояния от ануса до генитальных структур, далее следует удлинение полового бугорка, формирование уретры и крайней плоти [22, 23].

При афаллии на 4-й неделе эмбрионального развития происходит нарушение развития мезенхимы генитального бугорка в каудальном направлении, вследствие чего не развиваются и не формируются все составляющие полового члена (кавернозные и губчатое тела). При более тяжёлых вариантах афаллия может сопровождаться нарушением дифференцировки клоаки как процесс поломки бластогенеза. Все это происходит в тот же период эмбриогенеза, когда идет формирование других органов и систем плода, что объясняет возникновение широкого спектра сочетанных с афаллией пороков развития, связанных с мальформацией уроректальной перегородки (URSMS – urorectal septum malformation sequence). При частичной URSMS на промежности имеется общее отверстие клоаки, тогда как при полной URSMS отсутствует и уретральное и анальное отверстия. Частичный вариант URSMS, как правило, сочетается с пороками развития мочевой, сердечно-сосудистой систем и желудочно-кишечного тракта. Полный вариант URSMS сопровождается тяжёлой лёгочной гипоплазией, маловодием, являющимися следствием тяжёлых аномалий почек. Ребёнок с полным вариантом URSMS в большинстве случаев погибает сразу после рождения [4, 24].

Диагностика

Диагноз афаллии устанавливается на основании отсутствия полового члена при осмотре и определения нормального мужского кариотипа. Для исключения установки ошибочного диагноза проводят дифференциальную диагностику с рудиментарным или скрытым половым членом, микропенисом, с вариантами нарушения полового развития с кариотипом 46XY, внутриматочной ампутацией полового члена [GablerT.2018]. Для афаллии характерно наличие полноценных мужских гонад. Gautier и соавт. провели стимуляцию хорионическим гонадотропином у двух пациентов с агенезией полового члена и в обоих случаях получили адекватное увеличение тестостерона [25].

Современные визуализационные методы обследования широко используются при обследовании пациентов с агенезией полового члена. Проведённое сразу после рождения ребёнка ультразвуковое исследование позволяет заподозрить аномалии мочеполовой и других систем. Микционная цистография играет важную роль в демонстрации анатомии уретры, наличии обструкции мочевого пузыря, пузырно-мочеточникового рефлюкса и связи между мочеполовой системой и желудочно-кишечным

трактом. В последние двадцать лет на фоне повышения доступности магнитно-резонансной томографии (МРТ) сообщается о её высокой информативности при афаллии, особенно в режиме T2-W [26]. Ценность МРТ подтверждает также то, что при исследовании были выявлены недоразвитая кавернозная ткань в промежности и наличие губчатой ткани в проксимальной части уретры, вдающейся в прямую кишку [27].

Shamsa и соавт. описали мочекаменную болезнь у мальчика 18 мес с афаллией. У ребёнка отмечалось впадение уретры в прямую кишку с выделением мочи через последнюю на фоне установленного при рождении цистостомического дренажа. При рентгенологическом обследовании выявлено три больших фосфатных камня мочевого пузыря и три небольших в уретре, которые были элиминированы механической литотрипсией. Это единственный описанный в литературе случай мочекаменной болезни у ребенка с афаллией [28].

Классификация

Если исходить из отчёта международного консенсуса, принятого в Чикаго по проблеме нарушения формирования пола (DSD), мальчиков с афаллией, имеющих нетипичное развитие анатомического пола, следует относить к non-hormonal/non-chromosomal type 46, XY DSD [29].

Наиболее изменчивым признаком заболевания является место нахождения отверстия уретры. Skoog's и Belman, проведя анализ 60 опубликованных случаев агенезии полового члена (три из которых были их собственными наблюдениями), предложили свою анатомическую классификацию афаллии, основанную на локализации меатуса уретры [30]. Авторы выделяют три варианта афаллии:

- Пост-сфинктерная, когда меатус открывается ниже зубчатой линии анальной области или может располагаться в любом месте на промежности. Это самый распространённый вариант, встречающийся у 60% пациентов с афаллией. При этом на промежности часто определяется нарост в виде кожного гребня. При данном варианте отмечается самая высокая выживаемость (87%) и самая низкая частота ассоциированных аномалий.
- Пре-сфинктерный, когда меатус открывается над зубчатой линией, т.е. имеется уретроректальный свищ. Этот вариант встречается у 28% детей с афаллией и имеет 36% летальных исходов в периоде новорождённости из-за частого сочетания с опасными для жизни пороками развития.
- С атрезией уретры – самый редкий вариант афаллии, который отмечен у 12% детей и который имеет высокую летальность в связи с частым сочетанием с тяжёлыми пороками других систем (до 4 пороков на одного пациента) [30].

J.A. Evans и соавт. [2] в 1999 г. на основании анализа 57 пациентов с афаллией (2 собственных наблюдения) предложили прогностическую классификацию, основанную на наличии у пациентов сопутствующих аномалий. Согласно этой классификации, выделяются следующие группы:

- Первая группа пациентов составляет 16% случаев афаллии, которая сочетается у них с почечной аплазией (дисплазией) и другими каудальными нарушениями, дети этой группы имеют очень высокую летальность.
- На долю пациентов второй группы приходится 72% случаев, в ней отмечается незначительное количество сочетанных пороков развития, и соответственно низкая летальность.
- Третья группа – остальные 12% случаев, у которых нет сочетанных аномалий.

Таким образом, классификации, предложенные Skoog's и Evans, в некотором роде перекликаются, демонстрируя, что изолированная форма афаллии имеет хороший прогноз для жизни, тогда как при сочетании афаллии с другими пороками развития, особенно с антенатальной потерей функций почек, характерна высокая летальность [2, 30].

Выбор пола ребёнка

Одним из спорных вопросов, связанных с афаллией, является выбор пола ребёнка. С момента, когда Money в 1950-х гг. выдвинул свою гипотезу о превосходстве воспитания над природой при формировании половой идентичности, хирурги в случаях агенезии полового члена стали отдавать предпочтение назначению женского пола, обосновывая это тем, что в таком случае адекватная и функциональная хирургическая реконструкция легче [31]. Высказанное в литературе в 1997 г. мнение Hendren и соавт., что «лучше быть неполноценной женщиной, чем неадекватным мужчиной с точки зрения возможной социальной адаптации» и по настоящее время нередко является поводом для выбора у таких детей женского пола [32].

Лечение

Gabler и соавт. разделяют лечение таких мальчиков на три поочередных этапа: краткосрочный, среднесрочный и долгосрочный [4].

Краткосрочный этап заключается в лечении опасных для жизни состояний, ассоциированных с афаллией и проявляющихся сразу при рождении: дыхательной и сердечно-сосудистой недостаточности, устранении инфравезикальной обструкции путём наложения везикостомы. При наличии уретро-промежностного свища восстановление мочеиспускания не производится.

Среднесрочный этап включает разделение уретроректального свища с наложением промежностной уретростомии с или без временного формирования неофаллоса. При этом автор считает, что временную фаллопластику предпочтительно делать, используя кожу мошонки, чтобы оставить все остальные ткани для создания окончательно неофаллоса в периоде полового созревания.

Долгосрочный этап является завершением лечения и состоит из окончательной фаллопластики и формирования при необходимости континентной стомы по Митрофанову [4].

Важным моментом на среднесрочном этапе является разделение уретроректального свища. Здесь необходимо указать, что до определённого момента в описаниях пациенты или только наблюдались, или при наличии у них опасных для жизни состояний проводилось лечение, либо представлялись случаи с летальным исходом. В 1982 г. Рефа и Devries опубликовали методику лечения сложных случаев клоаки и урогенитального синуса используя задний сагиттальный подход, который обеспечивает отличную экспозицию для манипуляций и обзор к структурам промежности [33].

Следующим этапом стало исследование Stolar и соавт., которые применили задний сагиттальный доступ у 2 пациентов с афаллией для перемещения уретры с одновременной вагинопластикой и смещением ануса в анатомически правильное положение. Первому пациенту в периоде новорождённости был изменён пол на женский и проведена двусторонняя орхэктомия, далее в 1 год наложена колостомы и через 14 мес проведена феминизирующая операция задним сагиттальным доступом. Второму пациенту также был переназначен пол на женский при рождении, в 3 мес ребёнку проведена двусторонняя орхэктомия, однако феминизирующая реконструкция проведена ему в воз-

расте 9,5 лет. Авторы объясняют поздний срок операции тем, что данный подход не мог быть применён ранее, так как он еще не был разработан [34].

В 1996 г. Bruch и соавт. впервые предложили не разделять на этапы феминизирующую реконструкцию у пациентов с афалией, обосновав это тем, что это новый агрессивный хирургический подход к агенезии полового члена, а именно немедленная смена пола и реконструкция половых органов по женскому фенотипу в раннем неонатальном периоде, обеспечивающая отличный функциональный и эстетический результат с минимальными физическими и психологическими травмами для ребёнка и родителей [35]. К этой статье был опубликован комментарий Hendren, в котором он поддерживал данный подход и сообщал о 5 детях с афалией, у 4 из которых проведена одномоментная феминизирующая операция, используя задний сагиттальный доступ. Год спустя Hendren и соавт. опубликовали статью с подробным описанием этих 5 случаев [32].

В 2017 г. Macedo и соавт. сообщили о применении переднего сагиттального трансректального доступа (anterior sagittal transrectal approach – ASTRA) у 3 детей с афалией. Несмотря на удобства применения доступа, у 2 детей в последующем развилась стриктура уретры, что авторами объяснено неудачно проведённой уретропластикой в созданном неофаллосе по методике R. de Castro. В последующем авторы предлагают использовать ASTRA только для разделения уретры и прямой кишки с выведением меатуса на промежность и не проводить её одновременно с уретропластикой при создании неофаллоса из лоскута передней брюшной стенки [36]. Главным же преимуществом ASTRA является уменьшение количества операций, так как нет необходимости накладывать предварительно защитную колостому и в последствии её закрывать, как при заднем сагиттальном доступе [36].

Методы лечения при назначении женского пола

При назначении пациенту женского пола хирургическое лечение рекомендуется осуществлять поэтапно. В периоде новорождённости рекомендуется выполнять двухстороннюю орхэктомия с транспозицией уретры на промежность и лабиопластику, используя ткани мошонки. Вагинопластику откладывают обычно на более поздний срок, на время достижения пациентом пубертатного возраста. Важным моментом является назначение гормональной терапии, начиная с ожидаемого времени половой зрелости и на всю дальнейшую жизнь [37, 38].

Несмотря на довольно длительный период повсеместной реализации подобного подхода, в доступной литературе крайне редко можно встретить работы, освещающие отдалённые результаты в отношении сексуальной и психосоциальной адаптации таких женщин. Meyer–Bahlburg в 2005 г. в своей работе анализирует доступные литературные данные о 16 пациентах с агенезией полового члена, которым был назначен женский пол и о 17 с назначенным мужским полом. Из 16 наблюдавшихся детей первой группы 12 жили как женщины, 2 отмечали половую дисфорию и 2 сменили пол на мужской. При этом только 4 из 16 достигли возраста 18 лет. Что же касается 17 мужчин, то все оставались мужчинами, 6 из них достигли взрослого состояния. Данные, полученные Meyer–Bahlburg, говорят о предпочтительном назначении мужского пола детям с афалией [39].

Reiner и Kropf в 2004 г. сообщили о 18 мужчинах с тяжелой фаллической недостаточностью, 15 из которых был назначен женский пол и 3 мужской. Один пациент умер, из 17 наблюдаемых 10 – мужчины, 6 – женщины, и один отказался сообщать о своей сексуальной и половой

идентификации [40]. В 2005 г. Reiner публикует данные о 73 пациентах с нарушением половой дифференцировки и наличием Y-хромосомы, из них 60 были выращены как женщины. Во взрослом состоянии 26 (43%) из них заявили о женской идентичности, в то время как 32 (53%) идентифицируют себя мужчинами, по 2 нет данных. Reiner считает, что генетическим мужчинам, имеющим пренатальное воздействие андрогенов, должен быть назначен мужской пол [41].

Методы лечения при назначении мужского пола

В настоящее время мнение большинства авторов сводится к тому, что ребёнок с генетическим мужским полом и афалией должен быть подвержен хирургической реабилитации в качестве мужчины [42, 43].

Фаллопластика считается одной из самых сложных процедур в реконструктивной хирургии. В литературном обзоре, представленном в 1993 г., библиографический список включает в себя 131 публикацию, посвящённую различным методикам фаллопластик и их модификациям [44].

При создании неофаллоса ставятся следующие задачи: обеспечить внешний вид пениса максимально приближенного к виду нормального полового члена, создать неоуретру с возможностью мочиться по мужскому типу (стоя), обеспечить способность для проведения адекватного полового акта, что достигается, как правило, установкой пенильного протеза.

В обзоре, представленном в 2016 г. группой авторов на основании анализа большого количества публикаций, предложено методики фаллопластики при афалии разделить на две большие группы: микрохирургические и не микрохирургические [45].

Микрохирургические способы являются крайне сложными, длительными операциями и самое главное требуют многопрофильной хирургической бригады. Другой немаловажный момент заключается в том, что данные методики предусматривают формирование неофаллоса окончательного, необходимого взрослому мужчине, размера и установку протеза. Именно поэтому микрохирургическая реконструкция полового члена предполагает, что возраст пациента на момент операции уже достиг постпубертата [46]. Суть операции заключается в формировании полового члена из свободного мышечно-кожного лоскута, который переносится с сохранением сосудисто-нервного пучка, который далее анастомозируется с сосудами в паховой области. Считается, что формирование неофаллоса из радиального лоскута предплечья даёт лучшие косметические и функциональные результаты [47]. В нашей стране значительный опыт подобных операций принадлежит Миланову Н.О. и соавт., однако, несмотря на достаточно большое количество проведённых фаллопластик, авторы не сообщают о пациентах с афалией [48].

Не микрохирургические варианты фаллопластики, можно разделить на окончательные и временные. Окончательные в основном описаны у взрослых пациентов как варианты для коррекции транссексуалов из женщины в мужчину, а также при травматической утрате полового члена. При этом, как правило, в показаниях к этим методикам упоминается, что они могут быть применены и при агенезии полового члена.

В 1995 г. S. Perovic сообщил о фаллопластике у 24 пациентов в возрасте от 12 до 18 лет с использованием расширенного пахового островкового лоскута на сосудистой ножке (extended pedicle island groin flap). В данной серии было 4 транссексуалов женщина-мужчина, травматическая ампутация у 2 пациентов, 6 с экстрофией-эписпади-ей, 2 с изолированной эписпади-ей, 5 детей с интерсекс

(так указано в статье без конкретизации) и 7 мальчиков с микропенисом. Из 24 у 19 уже наступил пубертатный возраст и 5 оперированы в предпубертате. По сути это, наверное, первая публикация, в которой авторы сообщили о возможности проведения фаллопластики у детей. S. Petrovic в заключении пишет, что, учитывая огромные психологические проблемы у молодых пациентов данной группы, оптимальным возрастом для проведения операции является период от 10 до 14 лет [49].

Временные методики фаллопластики предложены как способствующие психосоциальной адаптации мальчика в раннем детстве и психосексуальной в подростковом периоде. На наш взгляд наиболее удачным термином, описывающим данный тип фаллопластик из встретившихся в литературе, является темпоризирующая (временная) фаллопластика (*temporizing* – дающая выиграть время), который употребил в своей работе M. Vajrai [50]. В силу того, что при афаллии длительное время предпочтительным считался выбор женского пола, а в случае выбора мужского пола реконструкцию полового члена откладывали на взрослый период жизни, публикации, посвящённые темпоризирующей фаллопластике у детей, появились только в последние два десятилетия.

В 2007 г. R. de Castro предложил свою оригинальную методику [51]. С этой публикации начался новый виток развития в разработке фаллопластики у детей.

Предложенная de Castro методика заключалась в формировании неофаллоса из прямоугольного лоскута передней брюшной стенки на питающей ножке. Одномоментная уретропластика, после выделения проксимальной части уретры посредством ASTRA, была проведена у 4 пациентов. В последующие годы автор в личных сообщениях докладывал, что значительно видоизменил эту операцию и применил ее у 47 детей (16 из которых с агенезией полового члена), но на момент написания данного обзора эти данные все еще не опубликованы.

В 2012 году Willihnganz–Lawson и соавт. сообщили об одном случае применения фаллопластики по de Castro [52]. Операция de Castro была предложена автором относительно давно и применяется уже больше 16 лет, тем не менее, об отдалённых результатах опубликовано лишь одно сообщение, в котором авторы, демонстрируют установку пенильного протеза мальчику через 10 лет после сформированного неофаллоса [53]. Несмотря на то, что мы рассматриваем эту методику в разделе о временной фаллопластике, сам автор считает, что сформированный неофаллос будет расти вместе с ребёнком и данный вид операции является окончательным [54]. Однозначно это можно будет утверждать, когда авторы опубликуют отдалённые результаты у пациентов, достигших взрослого состояния.

Особого внимания заслуживает работа Minu Vajrai, который в 2012 г. предложил оригинальную темпоризирующую методику создания неофаллоса из кожи мошонки. На первом этапе, используя прианальный передний корональный доступ, производится мобилизация и перемещение проксимальной уретры, а также формируется неофаллос из прямоугольного лоскута мошонки. Через 6 мес выполняется 1-й этап букальной пластики уретры и еще через 6 мес – 2-й этап: тубуляризация уретры. В обсуждении автор пишет, что мошоночная фаллопластика не посягает на ткани, которые могут понадобиться для последующих операций [49]. Спустя год автор предложил в качестве окончательной фаллопластики методику “Bird-Wing” (крылья птицы), при которой неофаллос создаётся из паховых лоскутов на сосудистой ножке, сформированных в виде крыльев по краю паховых складок с двух сторон [55].

Недостатком формирования неофаллоса из кожи мошонки является отсутствие каркаса и вследствие этого недостаточно хороший косметический вид. Для устранения этого недостатка Chaudhry и соавт. предложили в качестве каркаса при формировании неофаллоса из кожи мошонки применять аллогенный лиофилизированный бесклеточный дермальный матрикс (AlloDerm), состоящий из структурно интегрированных коллагеновых и эластических волокон, и который используется для увеличения объёма мягких тканей. Авторы отмечают отличный косметический результат у пациента через 12 мес после операции, с внешним видом необрезанного полового члена [56].

В 2014 г. Goyal и Bianchi предложили оригинальную фалло-уретропластику параскротальным лоскутом. Операция проводится в 3 этапа, первым этапом из мошоночного лоскута формируется неофаллос, вторым – неоуретра по принципу Dupley тубуляризацией кожи мошонки и неофаллоса, и третьим этапом накладывается анастомоз между промежуточным отверстием нативной уретры с неоуретрой. Авторы оценили состояние ребёнка через 3 года после последнего этапа операции: мальчик и его родители отлично адаптированы социально и не отмечают затруднения мочеиспускания и косметических дефектов. Ребёнок свободно мочится стоя, удерживает мочу и днём, и ночью, при средней скорости потока мочи 5 мл/с и максимальной в 9,5 мл/с. Хирурги в обсуждении сообщали, что данный вид вмешательства носит временный характер и во взрослой жизни пациенту потребуются корригирующие вмешательства, но, тем не менее, данная методика удовлетворяет потребности в ранней психологической поддержке ребёнка с афалией и его родителей [57].

Macedo и соавт. в 2015 г. представили новую альтернативную технику формирования неофаллоса из двух поперечных кожных лоскутов передней брюшной стенки. Авторы, ссылаясь на свой отрицательный опыт с одномоментным формированием неоуретры при фаллопластике по методике, предложенной De Castro, отказались от уретропластики и сформировали пациенту континентную стому по Митрофанову. Также доступом ASTRA у ребёнка была выделена и перемещена на промежность уретра, впадавшая в прямую кишку на 2 см выше сфинктера. Через 18 мес мальчик преимущественно мочился самостоятельно, и 1 раз в сутки мать его катетеризовала. Неофаллос спустя время несколько уменьшился в размерах [58].

Редкость встречаемости афалии обуславливает отсутствие публикаций с освещением отдалённых результатов фаллопластик как у детей, так и у взрослых. Одну такую работу мы упоминали ранее, где пациенту выполнили протезирование неофаллоса через 10 лет после операции De Castro [53]. Вторая работа, доступная нам, – это статья авторов из Индии, которые сообщили о необычном позднем осложнении фаллопластики с уретропластикой из кожного лоскута на ножке из паховой области у пациента, оперированного в 13 лет. Через 5 лет после операции у молодого мужчины образовался трихолитобезоар, который был устранен пневматической литотрипсией с последующей бульбарной уретролитотомией и механической эпиляцией. В краткосрочный период в течении 6 мес после операции пациент не предъявлял жалоб [59]. Несмотря на то, что авторы в названии статьи называют данное осложнение необычным, на наш взгляд оно достаточно обычное и часто встречающееся при формировании неоуретры из кожи мошонки или паховой области.

Завершая обзор, хотелось бы отметить, что современные достижения биоинженерии сообщают о создании полноценной кавернозной ткани у животных *in vitro*, что в будущем может стать обнадеживающим моментом для пациентов с афалией [60].

Заключение

Афаллия, несмотря на редкость, – порок развития, достаточно подробно и многогранно освещённый в медицинской литературе. Сочетание агенезии полового члена с другими врождёнными аномалиями нередко приводит к гибели таких детей. В настоящее время считается, что данным пациентам должен быть оставлен их генетический мужской пол, поэтому в долгосрочной перспективе возникает сложная проблема выбора оптимального способа и возраста для создания неофаллоса и неоуретры. На сегодняшний момент нет данных об отдалённых результатах временной и окончательной фаллопластики у мужчин с афалией, остаётся не освещённым вопрос естественной фертильности данных пациентов.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 1–8, 22, 24–41, 44–47, 49–60 см. в References)

9. Каганцов И.М., Дубров В.И., Де Кастро Р. Фаллопластика по Де Кастро при агенезии полового члена. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии*. 2020; 10(2): 183-91. DOI: <https://doi.org/10.17816/psaic659>.
23. Ширяев Н.Д., Каганцов И.М. *Очерки реконструктивной хирургии наружных половых органов у детей (часть I): Монография*. Сыктывкар. 2012.
42. Ширяев Н.Д., Каганцов И.М., Сизонов В.В., Дубров В.И. Нарушения половой дифференцировки у детей: критический взгляд на нерешенные вопросы (часть I). *Урология*. 2018; 2: 116–20.
43. Ширяев Н.Д., Каганцов И.М., Сизонов В.В., Дубров В.И. Нарушения половой дифференцировки у детей: критический взгляд на нерешенные вопросы (часть II). *Урология*. 2018; 2: 121–5. Doi: <https://dx.doi.org/10.18565/urology.2018.2.121-125>
48. Миланов Н.О., Адамян Р.Т., Карибеков Т.С. *Аутоперитрансплантация ревааскуляризованных тканей в пластической хирургии урогенитальной области*. М.: «АирАрт», 2007.

REFERENCES

1. Jack S. Elder. In: Walsh P.C., Retik A.B., Vaughan E.D. Jr, Wein A.J., ed. *Campbell's Urology*. 8th ed. Saunders: Elsevier Science; 2002: 2343-45.
2. Evans J.A., Erdile L.B., Greenberg C.R., Chudley A.E. Agenesis of the penis: patterns of associated malformations. *Am J Med Genet*. 1999; 84(1): 47–55. [https://doi.org/10.1102/\(SICI\)1096-8628\(19990507\)84:13.0.CO;2-X](https://doi.org/10.1102/(SICI)1096-8628(19990507)84:13.0.CO;2-X)
3. Venkatesh S.K., Babu P.R., Joseph T.P., Varma K.K. Male gender assignment of a child with aphallia and associated complex urological anomaly. *J Indian Assoc Pediatr Surg*. 2017; 22: 38-9. DOI: 10.4103/0971-9261.194619
4. Gabler T., Charlton R., Loveland J., Mapunda E. Aphallia: a review to standardize management. *Pediatric Surgery International*. Published online: 20 April 2018. <https://doi.org/10.1007/s00383-018-4271-z>.
5. Palacios-Juárez J., Hanson-Viana E., Rodríguez-Quintero J.H., Morales-Maza Aphallia: do sociocultural issues affect treatment decisions? *J. BMJ Case Rep*. 2018; 14: 2018: bcr2018226459. doi: 10.1136/bcr-2018-226459.
6. Qiang S., Li F.Y., Zhou Y., Yuan Y., Li Q. Congenital absence of the penis (aphallia): A rare case report. *Medicine (Baltimore)*. 2019 Apr; 98(15): 15129. doi: 10.1097/MD.00000000000015129.
7. Hagelschuer P., Mack-Detlefsen B., Korsch E., Ekamp A., Boemers T.M. *Urology A*. 2020 May 29. doi: 10.1007/s00120-020-01244-3. Online ahead of print. PMID: 32472223 German.
8. Decker E., Upasani A., Giuliani S., Cherian A. A Rare Case of Complete Penile Agenesis. *Urology*. 2020; 138: 8-9. DOI: 10.1016/j.urology.2020.01.011.
9. Kagantsov I.M., Dubrov V.I., De Castro R. De Castro falloplasty in penile agenesis. *Rossiyskiy zhurnal detskoy khirurgii, anesteziologii i intensivnoy terapii*. 2020; 10(2): 183-91. DOI: <https://doi.org/10.17816/psaic659> (in Russian)
10. Joshi A., Gross J., Thomalla J.V. Congenital Aphallia: Review of Pathogenesis and Current Treatment Guidelines. *Urology*. 2015; 86(2): 384-7. doi:10.1016/j.urology.2015.04.031 (in Russian)
11. Demirel Z., Aip B.F., Uguz S., Guragac A., Irkilata H.C. A rare case of penis agenesis (Aphallia) with associated multipleurogenital anomalies. *International Journal of Surgery Case Reports*. 2015; (15): 10–2. <https://dx.doi.org/10.1016/j.ijscr.2015.08.004>
12. Sharma D., Singh R., Shastri S. A case report of aphallia with urorectal septum malformation sequence in a newborn: a very rarely seen condition. *Int Med Case Rep J*. 2015; 4(8): 317-20. doi: 10.2147/IMCRJ.S92122.
13. Bahe P., Sharma D., Bahe A., Pandita A. An Infant With Aphallia and Its Associated Complication: A Rare Case Report and Review of Literature. *Trop Doct*. 2016; 46(1): 51-3. doi: 10.1177/0049475515576675.
14. Vanelli M., Bernasconi S., Balestrazzi, et. al. Absence congenitale et isolee du clitoris. *Arch Fr Pediatr*. 1978; 35: 165.
15. Friedman A.A., Zelkovic P.F., Reda E.F., Franco I., Palmer L.S. Male and female aphallia associated with severe urinary tract dysplasia. *Journal of Pediatric Urology*. 2016; 12(268): 1-7. <https://dx.doi.org/10.1016/j.jpuro.2016.04.040>
16. Choudhury S.R., Maji B.P. Penile agenesis: an unusual variant. *Intern Urol Nephrol*. 1993; 25(1): 71–6.
17. Martinez Tallo ME, Galan Gomez E, Cordero Carrasco JL, Hidalgo Barquero EH, Campo Sampedro PM, Cardesa Carcie JJ. Agenesis de pene y síndrome polimalformativo asociado con ingestio n materna de etretinato. *An Esp Pediatr*. 1989;31:399–400.
18. Oesch I.L., Pinter A., Ransley P.G. Penile agenesis: a report of six cases. *J Pediatr Surg*. 1987; 22: 172–4.
19. Carter J.P., Isa N.N., Hashem N. Raasch F.O, Jr.: Congenital absence of the penis: a case report. *J. Urol*. 1968; 99: 766.
20. Koffler H., Aase J.M., Papile L. Coen R.W. Persistent cloaca with absent penis and anal atresia in one of identical twins. *J. Ped*. 1978; 93: 821.
21. Berry S.A., Johnson D.E., Thompson T.R. Agenesis of the penis, scrotal raphe' and anus in one of monoamniotic twins. *Teratology*. 1984; 29: 173–6.
22. Kessler W.O. McLaughlin A.P. III: Agenesis of penis: embryology and management. *Urology*. 1973;1:226.
23. Shiryayev N.D., Kagantsov I.M. *Sketches of reconstructive surgery of external genitals in children (Part I): Monograph [Ocherki rekonstruktivnoy khirurgii naruzhnykh polovykh organov u detey. Monografiya]*. Syktyvkar: 2012. (in Russian)
24. Amiri T., et. al. Aphallia: Report of three cases and literature review. *Int J Reprod BioMed*. 2016; 14(4): 279-84.
25. Gautier T., Salient J., Pena S., Imperto-McGinley J., Peterson R.E. Testicular function in 2 cases of penile agenesis. *J Urol*. 1981; 126: 556–7.
26. Goenka A., Jain V., Sharma R., Gupta A.K., Bajpai M. MR diagnosis of penile agenesis: Is it just absence of a phallus? *Pediatr Radiol*. 2008; 38: 1109-12.
27. Wang H., Guo K., Wang J., Liu L., Li F. Aphallia in an adult male with 46,XY karyotype. *International Journal of Urology*. 2011; 18: 540–2. doi: 10.1111/j.1442-2042.2011.02785.
28. Shamsa A., Kajbafzadeh A.M., Parizadeh S.M.J., Zare M.A., Abolbashi M. Aphallia associated with urethro-rectal fistula and stones in the bladder and urethra. *Saudi J Kidney Dis Transpl*. 2008; 19(3): 435-8.
29. Mouriquand P.D.E., Gorduz D.B., Gay C.L., et. al. Surgery in disorders of sex development (DSD) with a gender issue: If (why), when, and how? *J Pediatr Urol*. 2016; 12(3): 139–49. <https://doi.org/10.1016/j.jpuro.2016.04.001>.
30. Skoog S.J., Belman A.B. Aphallia: its classification and management. *J. Urol*. 1989; 141(3): 589–92. [https://doi.org/10.1016/S0022-3468\(89\)80153-8](https://doi.org/10.1016/S0022-3468(89)80153-8)
31. Money J., Hampson J.G., and Hampson J.L. Hermaphroditism: Recommendations Concerning Assignment of Sex, Change of Sex and Psychologic Management, *Bull. Johns Hopkins Hosp*. 1955; 97: 284-300.
32. Hendren W.H. The genetic male with absent penis and urethrorectal communication: experience with 5 patients. *J Urol*. 1997; 157(4): 1469-74.
33. Peña A., Devries P.A. Posterior sagittal anorectoplasty: important technical considerations and new applications. *J Pediatr Surg*. 1982; 17(6): 796-811.
34. Stolar C.J.H., Wiener E.S., Hensle T.W., et. al. Reconstruction of penile agenesis by a posterior sagittal approach. *J Pediatr Surg*. 1987; 22: 1076-80.
35. Bruch S.W., Meuli M., Harrison M.R. Immediate Reconstruction for Penile Agenesis. *Journal of Pediatric Surgery*. 1996; 31(8): 1152-4.
36. Macedo A., et. al., The anterior sagittal transrectal approach (ASTRA) for cases associated with rectal implantation of the urethra: A retrospective review of six cases, *Journal of Pediatric Urology*. 2017. <https://dx.doi.org/10.1016/j.jpuro.2017.04.011>

37. Mane S.B., Thakur A., Dhende N.P., Obaidah A., Acharya H. Single-stage feminizing genitoplasty in aphallia through an anterior sagittal approach. *Journal of Pediatric Surgery*. 2009; 44: 2233–5.
38. Mirshemirani A. et. al. Penile Aggenesis: Report on 8 Cases. *Iran J Pediatr*. 2009; 19(2): 173-9.
39. Meyer-Bahlburg H.F. Gender identity outcome in female-raised 46, XY persons with penile agenesis, cloacal exstrophy of the bladder, or penile ablation. *Arch Sex Behav*. 2005; 34: 423.
40. Reiner W.G., Kropp B.P. A 7-year experience of genetic males with severe phallic inadequacy assigned female. *J Urol*. 2004; 172: 2395.
41. Reiner W.G., Gender Identity and Sex-of-rearing in Children with Disorders of Sexual Differentiation. *Journal of Pediatric Endocrinology & Metabolism*. 2005; 18: 549-53.
42. Shiryayev N.D., Kagantsov I.M., Sizonov V.V., Dubrov V.I. Disorders of sexual differentiation in children: a critical look at open questions (part I). *Urologiya*. 2018; 2: 116–20. <https://dx.doi.org/10.18565/urology.2018.2.116-20> (in Russian)
43. Shiryayev N.D., Kagantsov I.M., Sizonov V.V., Dubrov V.I. Disorders of sexual differentiation in children: a critical look at open questions (part II). *Urologiya*. 2018; 2: 121–15. <https://dx.doi.org/10.18565/urology.2018.2.121-125> (in Russian)
44. Hage J.J., Bloem J.J., Suliman H.M. Review of the literature on techniques for phalloplasty with emphasis on the applicability in female-to-male transsexuals. *J Urol*. 1993; 150: 1093-8.
45. Oliveira D.E.G., da Cruz M.L., Luquori R., Garrone G., Leslie B., Ottoni S.L., Souza G.R., Ortiz V., de Castro R., Macedo A. Jr Neophalloplasty in boys with aphallia: a systematic review. *J Pediatr Urol*. 2016; 12(1): 19–24. <https://doi.org/10.1016/j.jpuro.2015.10.0>
46. Bluebond-Langner R., Redett R. Phalloplasty in Complete Aphallia and Ambiguous Genitalia. *Semin Plast Surg*. 2011; 25: 196–205. <https://dx.doi.org/10.1055/s-0031-1281489>.
47. Kristinsson S., Johnson M., Ralph D. Review of penile reconstructive techniques Your Sexual. *Medicine Journal*. Published online: 09 March 2020. <https://doi.org/10.1038/s41443-020-0246-4>
48. Milanov N.O., Adamyan R.T., Karibekov T.S. *Autotransplantation of revascularized tissues in plastic surgery of the urogenital area [Autotransplantaciya revaskulyarizovannykh tkanej v plasticheskoj khirurgii urogenital'noj oblasti]*. Moscow: Air Art, 2007. (in Russian)
49. Perovic S. Phalloplasty in children and adolescents using the extended pedicle island groin flap. *J Urol*. 1995; 154(2 Pt 2): 848-53.
50. Bajpai M. Scrotal phalloplasty: A novel surgical technique for aphallia during infancy and childhood by pre-anal anterior coronal approach. *J Indian Assoc Pediatr Surg*. 2012; 17: 162-4.
51. De Castro R., Merlini E., Rigamonti W., Macedo Jr A. Phalloplasty and urethroplasty in children with penile agenesis: preliminary report. *J Urol*. 2007; 177(3): 1112-6. discussion 1117.
52. Willihnganz-Lawson K.H., Malaeb B.S., Shukla A.R. De Castro technique used to create neophallus: a case of aphallia. *Urology*. 2012; 79: 1149–51. doi: 10.1016/j.urology.2011.10.004.
53. Gouvea J.J. et. al. Penile prosthesis implantation in a patient with congenital aphallia treated using the De Castro technique 10 years previously. Is it feasible? *Journal of Pediatric Urology*. 2015; 11: 287: 8. doi.org/10.1016/j.jpuro.2015.05.022.
54. De Castro R., Rondon A., Barroso Jr.U., Ortiz V., Macedo Jr.A. Phalloplasty and urethroplasty in a boy with penile agenesis. *J Pediatr Urol*. 2013; 9(1): 108:1-2.
55. Bajpai M. “Bird-Wing” abdominal phalloplasty: A novel surgical technique for penile reconstruction. *J Indian Assoc Pediatr Surg*. 2013; 18: 49-52.
56. Chaudhry R., Theisen K. M., Dangle P. P., Schneck F. X. Congenital Aphallia: Novel Use of Acellular Dermal Matrix During Scrotal Flap Phalloplasty. *Urology*. 2017; 105: 167-70. doi: 10.1016/j.urology.2017.04.008.
57. Goyal A., Bianchi A. The parascrotal flap phallo-urethroplasty for aphallia reconstruction in childhood: Report of a new technique, *Journal of Pediatric Urology*. 2014; 1: 7. <https://dx.doi.org/10.1016/j.jpuro.2014.01.007>.
58. Macedo A., et. al. Neophalloplasty to congenital aphallia using two transverse skin-flaps: An alternative approach, *Journal of Pediatric Urology*. 2015; 5: 25. <https://dx.doi.org/10.1016/j.jpuro.2015.05.025>
59. Singh V., Nagathan D.S., Sinha R.J., Gupta D.K. Tricholithobezoar: An Unusual Late Complication of Neourethral Reconstruction in Aphallia. *Korean J Urol*. 2013; 54: 345-7. <https://dx.doi.org/10.4111/kju.2013.54.5.345>.
60. Chen K.L., Eberli D., Yoo J.J., et. al. Bioengineered corporal tissue for structural and functional restoration of the penis. *Proc Natl Acad Sci USA*. 2010; 107: 3346-50.

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2021

Меркулова А.О.¹, Харитонов А.Ю.¹, Карасева О.В.^{1,4}, Шавров А.А.^{2,3}

Современные подходы к диагностике и возможности эндоскопического лечения стенозов пищевода у детей

¹ГБУЗ города Москвы «Научно-исследовательский институт неотложной детской хирургии и травматологии» Департамента здравоохранения города Москвы, 119180, Москва, Россия;

²ФГАОУ ВО «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 117997, г. Москва, Россия;

³ГБУЗ города Москвы «Морозовская детская городская клиническая больница» Департамента здравоохранения города Москвы, 119049, г. Москва, Россия;

⁴ФГАУ «Национальный медицинский исследовательский центр здоровья детей» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 119296, Москва, Россия

КОММЕНТАРИЙ. В чём задача написания обзора: это объективно обозначать неразрешённые проблемы. Стенозы пищевода у детей встречаются редко. Понять правила, по которым их можно лечить, удел специальных учреждений с длительной историей торакальной хирургии. Много из того, что встречается в литературе по этому разделу, неэффективно, а значит приносит вред больному. Писать обзоры должны только авторы, имеющие соответствующий опыт. В противном случае мы можем дезориентировать детских хирургов нашей страны.

Разумовский А.Ю.
Заведующий кафедрой детской хирургии ГБОУ ВПО «РНИМУ им. Н.И. Пирогова» Минздрава России, главный внештатный детский специалист хирург Департамента здравоохранения г.Москвы, заведующий отделением детской торакальной хирургии ГБУЗ «Детская городская клиническая больница № 13 им. Н.Ф. Филатова ДЗМ», д.м.н., профессор, член-кор. РАН

Введение. Стенозы пищевода в детском возрасте являются довольно распространённым заболеванием, характеризующимся различной этиологией, специфической клинической картиной, широким спектром заболеваний в дифференциальном ряду и многообразием в подходах к лечению.

Материал и методы. В обзоре проведён анализ научной литературы, представленной в таких поисковых системах, как Medline, PubMed, Cochrane Library, eLibrary, глубиной 20 лет. Также были включены наиболее значимые работы прошлого XX века. Поиск проводили по ключевым словам.

Результаты. Были отобраны 60 литературных источников, включающих описание современных представлений об этиопатогенезе, классификации, методах диагностики и лечения стенозов пищевода у детей. Особое внимание уделено оценке безопасности и эффективности малоинвазивных эндоскопических вмешательств (бужирование, баллонодилатация) и сопутствующему местному применению митомидина С в лечении стенозов пищевода у детей на современном этапе.

Заключение. Восстановление просвета пищевода с помощью инновационных эндоскопических технологий представляет перспективным методом эффективного и безопасного лечения, позволяющего в подавляющем большинстве наблюдений уменьшить хирургическую агрессию и избежать сложных реконструктивных операций.

Ключевые слова: дети; стеноз пищевода; стриктура пищевода; рецидивирующая стриктура; эндоскопия; бужирование; баллонная дилатация пищевода; митомидин С; обзор

Для цитирования: Меркулова А.О., Харитонов А.Ю., Карасева О.В., Шавров А.А. Современные подходы к диагностике и возможности эндоскопического лечения стенозов пищевода у детей. *Детская хирургия.* 2021; 25(4): 267-273.

DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-267-273>

Для корреспонденции: Меркулова Анастасия Олеговна, врач-эндоскопист отделения эндоскопии, ГБУЗ «НИИ неотложной детской хирургии и травматологии» ДЗМ, 119180, Москва, Россия. E-mail: anast.merkulova@gmail.com

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Меркулова А.О. – сбор и обработка материала, написание текста; Харитонов А.Ю. – концепция и дизайн исследования, написание текста; Шавров А.А. – концепция и дизайн исследования; Карасева О.В. – редактирование. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 09 марта 2021

Принята в печать 05 июня 2021

Merkulova A.O.¹, Kharitonova A.Yu.¹, Karaseva O.V.^{1,4}, Shavrov A.A.^{2,3}

Modern approaches to the diagnostics and potentials of endoscopic treatment of esophageal stenoses in children

¹Clinical and Research Institute of Emergency Pediatric Surgery and Trauma, Moscow, 119180, Russia;

²Pirogov Russian National Research Medical University, Moscow, 117997, Russia;

³Morozovskaya Municipal Children's Hospital, Moscow, 119049, Russia;

⁴National Medical Research Center of Children's Health, Moscow, 119296, Russia

Introduction. Esophageal stenosis in childhood is quite a common disease characterized by different etiology, specific clinical picture, wide range of differential diseases and a variety of approaches to its treatment.

Material and methods. The review analyzes scientific literature presented in such search engines as Medline, PubMed, Cochrane Library, eLibrary, 20 years deep. The most significant works of the last century were included too. Keywords were used for search.

Results. There were selected 60 literary sources which included the description of modern concepts of etiopathogenesis, classification, diagnostic and curative techniques for the treatment of esophageal stenosis in children. A particular attention is paid to the safety

and effectiveness of minimally invasive endoscopic interventions (bougienage, balloon dilation) as well as to the topical application of Mitomycin C in the treatment of esophageal stenosis in children.

Conclusion. Innovative endoscopic technologies applied for the restoration of the esophageal lumen seem to be promising, effective and safe. In the overwhelming majority of cases, they allow to reduce surgical aggression and avoid complex reconstructive surgeries.

Key words: children; esophageal stenosis; esophageal stricture; recurrent stricture; endoscopy; bougienage; esophageal balloon dilatation; Mitomycin C; review.

For citation: Merkulova A.O., Kharitonova A.Yu., Karaseva O.V., Shavrov A.A. Modern approaches to the diagnostics and potentials of endoscopic treatment of esophageal stenoses in children. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 267-273. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-267-273> (In Russian)

For correspondence: Anastasia O. Merkulova, MD, endoscopist at department of endoscopy in the Clinical and Research Institute of Emergency Pediatric Surgery and Trauma, Moscow, 19180, Russia. E-mail: anast.merkulova@gmail.com

Information about the authors:

Merkulova A.O., <https://orcid.org/0000-0001-8623-0947>;
Kharitonova A.U., <https://orcid.org/0000-0001-6218-3605>;

Karaseva O.V., <https://orcid.org/0000-0001-9418-4418>
Shavrov A.A., <https://orcid.org/0000-0003-3666-2674>

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: Merkulova A.O. – the collection and processing of the material, writing a text; Kharitonova A.Yu. – the concept and design of the study, writing a text; Shavrov A.A. – the concept and design of the study; Karaseva O.V. – editing. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: March 09, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

Стенозом (стриктурой) пищевода называется уменьшение диаметра просвета пищевода, которое приводит к нарушению его нормальной проходимости. Стриктуры пищевода в детском возрасте являются довольно распространённым заболеванием, имеющим различную этиологию [1–4]. У взрослых опухоли пищевода являются наиболее частой причиной стриктур, в то время как у детей этиологический спектр гораздо шире [2, 4]. Различают врождённые, приобретённые, возникающие в исходе функциональных (ахалазия) и других патологических состояний (эозинофильный эзофагит, буллезный эпидермолиз), стенозы [1–4].

Врождённые стенозы пищевода (ВСП) встречаются значительно реже приобретённых. Заболеваемость ВСП составляет 1 случай на 25 000–50 000 новорождённых с небольшим преобладанием мальчиков [1, 5]. Однако сведения о компенсированных, скрытых или бессимптомных врождённых стенозах пищевода ограничены. ВСП возникают в процессе эмбриогенеза и разделяются на 3 патогистологических типа: фибромышечное утолщение или фибромышечный стеноз; трахеобронхиальный рудиментарный хрящевой тип; мембрана слизистой оболочки (мембранозная перепонка, пищеводная мембрана) [3, 6, 7]. Частота встречаемости этих разновидностей составляет 53,8, 29,9 и 16,2% соответственно [5].

Врождённый стеноз пищевода с наличием хрящевого кольца (рудиментарный хрящевой тип, трахеобронхиальный рудиментарный тип), по данным литературы прошлого столетия, является исходом дефектного отделения примитивного пищевода от передней кишки [1, 8–10]. Большинство современных исследований не объясняют этиологию данной патологии, поэтому точный механизм возникновения этого расстройства до конца не выяснен. Рудиментарный хрящевой тип является наиболее частым вариантом дистального ВСП [6, 10, 11]. По мнению японских исследователей, хрящ, как правило, обнаруживают в пределах 1–3 см от кардиоэзофагеального перехода [2, 3, 9, 12]. Гистологически при рудиментарном хрящевом типе ВСП определяют хрящевую ткань, респираторный эпителий и/или серомукоидные железы. Причём именно наличие хряща в стенке пищевода обуславливает развитие стеноза [3]. Эктопический респираторный эпителий (реснитчатый цилиндрический эпителий) обнаруживают в глубоких структурах стенки пищевода вместе с лимфоидной (брон-

хогенная лимфоэпителиальная) тканью [9]. Пассаж по пищеводу при рудиментарном типе ВСП может быть затруднён механически хрящевой или значительно развитой лимфоэпителиальной тканью и функционально-аперистальтическим сегментом пищевода [9, 13].

Фибромышечный вариант ВСП встречается чаще, чем рудиментарный хрящевой тип, и представляет собой сегментарную гипертрофию мышечного и подслизистого слоёв с диффузным фиброзом [1, 7, 14]. Стеноз пищевода за счёт фибромышечной гипертрофии чаще локализуется в средней или нижней трети пищевода [2, 5]. P.R. McNally и соавт. [15] указывают на возможность значительного утолщения изолированного мышечного слоя с нарушением моторики в стенотическом сегменте пищевода.

Мембрана слизистой оболочки образуется в результате нарушения реканализации просвета в процессе эмбриогенеза пищевода. Однако подробное описание этого механизма стенозирования недостаточно отражено в современной литературе [2]. Мембраны представлены нормальным плоскоклеточным эпителием и мышечным слоем. Они чаще бывают одиночными, реже – множественными. Мембрана слизистой оболочки чаще локализуется в верхней или средней трети пищевода [2]. В современной литературе нам удалось найти единичные описания множественных ВСП [7, 16].

Среди приобретённых форм стенозов различают ожоговые, анастомотические, пептические, неопластические стриктуры. Стриктуры пищевода могут быть также исходом таких состояний, как буллезный эпидермолиз и эозинофильный эзофагит [3]. Наиболее распространёнными причинами приобретённых стенозов являются осложнения и последствия оперативных вмешательств на пищеводе (фундопликация, эзофагопластика), а также ожоги пищевода коррозионными веществами [17, 18].

Важно отметить, что критерии оценки протяжённости и степени сужения просвета пищевода, принятые у взрослых, неприемлемы в педиатрии, так как диаметр просвета и длина пищевода существенно отличаются в различные возрастные периоды. Так, длина пищевода новорождённого составляет в среднем 10 см, к 5 годам достигает 16 см, к 15 – 19 см, а у взрослых – 23–27 см. Диаметр просвета пищевода увеличивается от 5–7 мм у новорождённых до 20 мм и более того у взрослых. У детей критерии оценки, безусловно, должны отличаться от принятых во взрослой практике. По мнению

М.П. Королева и соавт. [19], наиболее целесообразно выделять степени стеноза:

- I степень – диаметр просвета в зоне сужения составляет 6–8 мм, удаётся провести гастроинтестинальный эндоскоп с наружным диаметром 5 мм;
- II степень – диаметр просвета пищевода сужен до 2–5 мм;
- III степень – менее 2 мм, что не позволяет провести ультратонкий эндоскоп за зону стеноза. Сужение пищевода до 5 мм у новорождённого может быть полностью компенсированным и не препятствовать прохождению пищи, а у подростка – приводит к тотальной обтурации просвета.

Таким образом, в педиатрии для характеристики степени сужения просвета органа только количественных показателей недостаточно. М. Said и соавт. в исследовании по эндоскопическому лечению стриктур анастомоза после хирургического лечения атрезии пищевода в качестве объективного показателя степени сужения просвета предложил индекс стриктуры (ИС), рассчитываемый по данным контрастной рентгеноскопии по формуле:

$$\text{ИС} = (D - d) / D,$$

где D – диаметр постстенотического участка пищевода, а d – диаметр пищевода в зоне сужения [20]. Измерять ИС по данным эндоскопического исследования и показал корреляцию между величиной ИС и числом сеансов дилатации, необходимых пациенту: если $\text{ИС} \leq 0,1$, то наличие стриктуры считают неподтверждённым; $0,1 < \text{ИС} < 0,3$ – умеренный стеноз, эндоскоп с затруднением может быть проведён в просвет желудка; $\text{ИС} \geq 0,3$ – выраженный стеноз, попытки провести эндоскоп за зону сужения, как правило, безуспешны [21]. При выраженном стенозе пациентам требуется большее число процедур дилатации, нежели при умеренной.

Клинические проявления

Новорождённые с ВСП обычно нормально переносят грудное вскармливание, симптомы дисфагии в виде регургитации и рвоты появляются при введении прикорма в возрасте от 4 до 10 мес [1, 3, 15, 22–24]. В зависимости от степени сужения пищевода клинические проявления могут длительное время компенсироваться и впервые проявиться только в подростковом или взрослом возрасте [5]. К другим симптомам, на которые необходимо обращать внимание, относят гиперсаливацию, респираторный дистресс-синдром, стридорозное дыхание при кормлении, хронический “аллергический” кашель, срыгивание, рецидивирующую аспирационную пневмонию, также у ребёнка может быть задержка развития и, наконец, вклинённое инородное тело пищевода [3, 8, 12, 22, 24].

Дифференциальная диагностика

При атипичной клинической картине диагноз стеноза пищевода является нелёгкой задачей. Дифференциальный ряд дисфагии достаточно широк: неврологические заболевания, патология органов дыхания, психологические проблемы между кормильцем и ребёнком, многочисленные генетические, метаболические и дегенеративные заболевания [13, 25, 26]. Е. Romeo и соавт. [2], в первую очередь рекомендуют исключить гастроэзофагеальную рефлюксную болезнь, эозинофильный эзофагит, ожог пищевода вследствие употребления едких веществ, кандидоз, ахалазию, буллезные кожные заболевания, последствия облучения средостения и длительной назогастральной интубации.

Говоря о ВСП, важно помнить, что это состояние может быть изолированным [21] или сопровождаться други-

ми пороками развития, чаще (до 33%) атрезией пищевода с трахеопищеводной фистулой и генетическими аномалиями [1, 3, 7, 8, 10, 11, 22]. Среди других сочетанных пороков могут встречаться: удвоение пищевода, врождённый порок сердца, аноректальные мальформации, атрезия или удвоение двенадцатиперстной кишки и других отделов кишечника, трахеомалия, грыжа пищеводного отверстия диафрагмы, микрогастрия, дивертикул Меккеля, микрофтальм, синдром Аперта, нёбная расщелина и гемангиома [1, 3, 6–8, 10, 22–24].

Диагностика

Врождённые стенозы пищевода трудно отличимы от приобретённых, однако их дифференциация является приоритетной задачей ввиду различной тактики лечения.

На первом этапе диагностического поиска F. Savino и соавт. [27] предлагают исключать орофарингеальные причины дисфагии. Поэтому в первую очередь назначают консультацию оториноларинголога и невролога. Далее проводят инструментальные методы обследования: эзофагография, эндоскопическое исследование, в том числе, эндоультрасонография, рН-метрия и манометрия пищевода. При врождённом сужении пищевода окончательный диагноз с определением типа стеноза возможен только при патоморфологическом исследовании операционного материала [2, 26].

Рентгенография органов грудной клетки в прямой и боковой проекции является начальным этапом диагностического поиска [6]. При контрастном рентгенологическом исследовании определяют сегментарное, концентрическое, как правило, короткое (0,5–1 см) и ровное сужение пищевода с разной степенью дилатации престенотического участка [1, 2]. Сужение может быть резким (обрывистым), что больше характерно для трахеобронхиального рудиментарного типа, или конической формы, что более свойственно фибромышечному варианту ВСП или мембране слизистой оболочки [22]. Выполнение рентгеноскопии с контрастом позволяет исключить инородное тело и свищ [1, 2]. Рентгенологическое контрастное исследование позволяет выявить до 90% стенозов пищевода [28]. Иногда необходима рентгенография в боковой проекции, а также применение других рентгенологических методов, поскольку при прохождении раствора бария стеноз может быть не замечен или неправильно интерпретирован. ВСП также может быть ошибочно расценён как транзиторный спазм, нарушение моторики или сужение пищевода в результате рефлюкса [16].

Диагностическая значимость компьютерной томографии (КТ) остаётся неоднозначной. В исследовании L. Michaud и соавт. [28] КТ была выполнена 8 пациентам с ВСП и позволила подтвердить диагноз стеноза во всех случаях. Но, с другой стороны, ни в одном из этих исследований не было выявлено признаков хрящевой ткани в стенке пищевода, что не позволяет применять КТ в дифференциальной диагностике типов ВСП.

Невозможность провести эндоскоп через пищевод в желудок при эзофагогастродуоденоскопии (ЭГДС) указывает на наличие стеноза [7, 21]. Но при исследовании тонкими эндоскопами, мембраны слизистой оболочки могут остаться незамеченными. Отсутствие эндоскопических признаков воспаления слизистой оболочки, подтверждённое гистологическим исследованием биопсийного материала, позволяет исключить такие патологические состояния, как рефлюкс-эзофагит (пептический эзофагит) и ожог пищевода. рН-метрия и манометрия пищевода могут способствовать дифференциальной диагностике ВСП и пептических стриктур [1, 3, 6, 11]. Для исключения ахалазии необходима манометрия пищевода,

которая у 75% пациентов может выявить локальную патологическую зону высокого давления в месте расположения стриктуры помимо нормальной зоны высокого давления в нижнем пищеводном сфинктере [6].

Эндоскопическая ультрасонография (ЭУС) способствует дифференциальной диагностике между трахеобронхиальным рудиментарным и фибромускулярным типом ВСП [1, 2, 5, 7, 22, 29]. При ультразвуковом исследовании хрящевая рудиментарная ткань визуализируется как гипоэхогенная структура [7]. ЭУС-картина ВСП представляет собой локальное циркулярное гипоэхогенное утолщение стенки пищевода с нарушением нормального расположения слоев в области стриктуры [29]. На результаты ЭУС можно опираться при постановке диагноза и в дифференциальной диагностике стенозов, поскольку биопсия стенки пищевода в области сужения малоинформативна.

Патоморфологическое исследование операционного материала позволяет установить окончательный диагноз, но необходимо отметить, что резецированная ткань пищевода не всегда имеет достаточную толщину, чтобы полностью исключить трахеобронхиальную хрящевую ткань [1]. В случае ВСП трахеобронхиального рудиментарного типа гистологически определяют наличие зрелого или незрелого хряща, серомукоидных желёз и реснитчатого цилиндрического эпителия, отдельно или в сочетании [3, 28]. При фибромускулярном типе ВСП выявляют циркулярную пролиферацию гладкомышечных волокон и фибромышечное утолщение. Мембраны, как правило, представлены нормальным плоскоклеточным эпителием и мышечным слоем.

Таким образом, для установки диагноза стеноза пищевода необходимо комплексное инструментальное обследование, основой которого являются эзофагография и ЭГДС. Окончательное подтверждение типа стеноза является трудной задачей и нередко возможно только после гистологического исследования биопсийного и/или операционного материала.

Лечение стенозов пищевода может быть эндоскопическим и/или хирургическим.

Эндоскопическое лечение

По мнению R.J. Lew и M.L. Kochman [30], эндоскопическое лечение стенозов пищевода у детей является приоритетной стратегией на современном этапе. Усовершенствование эндоскопической аппаратуры и инструментария привело к более широкому применению эндоскопической дилатации и значительному сокращению хирургического лечения [30]. Но единого общепризнанного стандарта выбора эндоскопической методики на сегодняшний день не определено [2, 18]. Наиболее часто используют полуригидные бужи различного диаметра и баллонные дилататоры, проводимые по направляющей струне или через канал эндоскопа [30–34].

В литературе нам не удалось найти рандомизированных сравнительных исследований безопасности и эффективности разновидностей эндоскопического лечения. Однако сторонники баллонной дилатации считают этот метод более эффективным и менее травматичным, поскольку расширение пищевода достигается за счет целенаправленного равномерного радиально распространяющегося усилия [7, 31–33]. В то время как при бужировании возникает смещающее усилие по оси пищевода, что обуславливает более высокий риск возникновения перфорации [5]. Кроме того, баллонную дилатацию проводят под зрительным контролем с установкой баллонного катетера непосредственно в зоне стриктуры и визуализацией раздувания баллона, что также снижает

риск перфорации [31–35]. Единственный недостаток заключается в том, что баллоны – это одноразовые устройства, поэтому они намного дороже, чем эндоскопические бужи [35]. Среднее число процедур на одного пациента выше при бужировании, чем при баллонной дилатации, и составляет от 4,1 до 21,1 сеансов [17, 32, 33] и от 3,3 до 9,3 [31, 34, 36] соответственно.

Необходимость предварительной дифференциации видов врождённого стеноза пищевода продолжает обсуждаться. Большинство авторов при ВСП трахеобронхиального рудиментарного хрящевого типа отказываются от эндоскопической дилатации в пользу хирургического лечения [1, 6, 7, 22, 37]. Считается, что дилатация пищевода с фиксированными хрящевыми структурами в составе стенки не только неэффективна, но и ассоциирована с более высоким риском перфорации.

Однако результаты исследования E. Romeo, F. Foschia, P. de Angelis и соавт. [2] опровергают это утверждение. Авторы предприняли попытку дилатации у 47 пациентов, вне зависимости от типа ВСП, и получили клинический эффект в 95,7% случаев. Двум пациентам в этой группе потребовалось хирургическое лечение. У одного из этих двух пациентов хрящевой рудиментарный тип ВСП был определён при ЭУС до операции и подтверждён при гистологическом исследовании операционного материала. Это был один из 6 пациентов, у которых в ходе исследования был выявлен хрящевой рудиментарный тип врождённого стеноза. Таким образом, только у одного из 6 пациентов с выявленной при эндоскопии хрящевой тканью в зоне стеноза пищевода в итоге возникла необходимость в хирургическом лечении. Частота перфораций после дилатации ВСП составила 10,6% (5 из 47 пациентов). Три перфорации произошли вследствие баллонной дилатации и две – в результате бужирования. Неизвестно, сколько пациентов с осложнённым течением имели хрящевой рудиментарный тип стеноза, так как у 4 из 5 больных лечение перфорации было консервативным, а гистологический тип стеноза у пациента, которому потребовалась операция, неизвестен. Среднее число процедур на 1 пациента составило 3 (от 1 до 9) с интервалом в 15 дней [2]. Авторы рекомендуют предпринимать попытки дилатации всем пациентам, прежде чем направлять их на операцию.

Другие исследователи сообщают о значительно более низких показателях успешного эндоскопического лечения у пациентов с хрящевым рудиментарным типом ВСП [7, 28]. При этом в исследованиях не представлена подробная характеристика пациентов, которым удалось провести дилатацию просвета пищевода эндоскопически, поскольку диагноз устанавливали только по данным эзофагограммы, без использования ЭУС. Всех пациентов, у которых малоинвазивная дилатация была успешной, а мембрана слизистой оболочки при эндоскопии не была выявлена, исследователи относили к группе с фибромышечным типом стеноза [2, 28]. Michaud и соавт. [28] использовали эндоскопические методы в качестве первой линии лечения у 49 из 58 пациентов и отметили 2 (3,4%) случая перфорации. Один – после баллонной дилатации, второй – после бужирования, причем оба пациента имели хрящевой рудиментарный тип стеноза. S. Takamizawa и соавт. [7] при мембранозном типе ВСП предлагают в дополнение к дилатирующим методикам использовать эндоскопическую абляцию с помощью CO₂-лазера или термокоагуляции. Однако вопрос, повышается ли при этом риск перфорации пищевода, изучен недостаточно.

Факторы, определяющие успех или неудачу эндоскопического лечения, различны и включают в себя: возраст пациента, локализацию, степень выраженности, про-

тяжённость стриктуры, а также число стенозированных участков и степень ответа на дилатацию [16, 31]. Переход от эндоскопического лечения к хирургическому вмешательству показан при развитии осложнений в ходе эндоскопической дилатации или отсутствии клинического эффекта при последовательном выполнении процедур дилатации, по крайней мере, в течение 2 лет [17, 35].

Рецидив стеноза после проведённого эндоскопического лечения – достаточно частое явление и, как правило, требует повторных процедур баллонной дилатации или бужирования, что повышает риск осложнений [38]. Патогенез рецидивирующего стеноза до конца не изучен, но известно, что стимуляция фиброгенеза может быть спровоцирована травматизацией тканей при повторных процедурах дилатации. Повторные дилатации вызывают повторную механическую травму в области патологического участка, и затем процесс заживления, формируя таким образом порочный круг [39, 40]. В литературе опубликовано достаточно исследований эффективности медикаментозных препаратов, которые прямо или косвенно ингибируют образование коллагена и предотвращают формирование стриктур. К ним относят ретардные формы стероидов с антибиотиками, витамин Е, витамин А, пентоксифиллин и другие. Однако лишь немногие из них в настоящее время широко используют в клинической практике [39, 40]. Наиболее обсуждаемым в последние годы препаратом для профилактики рубцевания является митомицин С (МС).

МС – это цитотоксический антибиотик, который ингибирует пролиферацию фибробластов и снижает синтез коллагена [39–41]. МС в настоящее время применяют местно после офтальмологических операций [42], в послеоперационном периоде при рецидивирующем стенозе гортани и трахеи, при стриктурах верхних отделов пищеварительного тракта у детей [40, 43–45]. Препарат показал высокую эффективность при лечении рефрактерных стриктур гастроинтестинального тракта, как у взрослых, так и у детей [45–47]. Доказана эффективность МС при лечении стенозов пищевода, в том числе, вследствие ожога едкими веществами [48, 49]. Европейское общество детской гастроэнтерологии, гепатологии и нутрициологии (ESPGHAN), а также Европейское общество гастроинтестинальной эндоскопии (ESGE) рекомендуют применение МС при дилатации рефрактерных ожоговых стенозов пищевода [50, 51]. В литературе рассматриваются различные концентрации препарата и различные способы его применения (например, через ригидный эндоскоп или гибкий фиброскоп). В исследовании S. Rosseneu и соавт. в 2007 г. [52] клинический эффект при рецидивирующем стенозе пищевода был достигнут при концентрации препарата 0,1–0,4 мг/мл, а в исследовании S. Uhlen и соавт. [44] – 1 мг/мл. В исследовании, опубликованном в 2019 г. D. Leu и соавт. [47], различия между различными концентрациями и способами введения препарата выявлено не было.

Еще два альтернативных метода лечения показали обнадеживающие результаты: стентирование пищевода и локальная инъекция стероидных гормонов, но данные об их эффективности и безопасности ограничены, особенно, у детей.

Стентирование пищевода – рутинное эндоскопическое вмешательство при стриктурах пищевода, обусловленных неоперабельными новообразованиями у взрослых [51, 53], его иногда используют для профилактики образования/рецидива стриктур у детей. Побочные эффекты часты и включают тошноту, рвоту, боль, миграцию стента и гастроэзофагеальный рефлюкс. Перспективными представляются новые биоразлагаемые или силиконовые стенты [54]. Проводились исследования

противовоспалительного эффекта инъекций стероидных гормонов при местном их применении при ожоговых стенозах пищевода [31–55]. Но такие серьёзные осложнения, как инфицирование или перфорация пищевода, останавливают их широкое применение.

В настоящее время эндоскопическую дилатацию пищевода у детей проводят исключительно под наркозом, что обеспечивает низкий риск осложнений [18]. Значимые прогностические факторы развития осложнений на настоящий момент не установлены [56]. Наиболее частым потенциальным осложнением является кровотечение, а наиболее серьёзным – перфорация. Перфорация чаще отмечается при бужировании, чем при баллонной дилатации и составляет 1–1,5% [17, 31–34].

Назначение антибиотиков в послеоперационном периоде рекомендуют для снижения риска инфекционных осложнений, а также ввиду более частого формирования рубцов при отсутствии антибактериальной терапии [57]. Митомицин С, используемый для профилактики рубцевания, как правило, хорошо переносится пациентами. D. Leu и соавт. [47] указывают на возможность развития желудочной метаплазии в месте применения МС. Невозможно определить, что именно провоцирует ее развитие: действие препарата, ожоговая травма или последовательные дилатации. Один случай рака был зарегистрирован после применения МС в гортани [58], 4 случая (плоскоклеточный рак пищевода) – у пациентов, оперированных в периоде новорожденности по поводу атрезии пищевода [59]. Хотя роль МС в патогенезе рака пищевода не доказана, рекомендуется длительное эндоскопическое наблюдение за такими пациентами, поскольку МС может быть дополнительным фактором риска развития отдалённых неопластических осложнений [47].

Хирургическое лечение

Сегментарная эзофагэктомия с анастомозом «конец в конец» была и остаётся стандартным хирургическим лечением врождённого стеноза пищевода всех типов. В некоторых случаях ее дополняют фундопликацией, что обеспечивает дополнительное укрывание анастомоза и функцию нижнего пищеводного сфинктера в случаях, когда гастроэзофагеальный переход резецирован или расположен в грудной полости [6]. Гастроэзофагеальный рефлюкс является частым послеоперационным осложнением сегментарной эзофагэктомии, поэтому фундопликацию рекомендуют в качестве дополнительной профилактики [6, 37]. В некоторых случаях рефлюкс является осложнением самого заболевания, особенно при трахеобронхиальном и фибромускулярном типах врождённого стеноза [37]. К преимуществам хирургического лечения трахеобронхиального рудиментарного типа стеноза относят возможность прямой пальпации стенки пищевода на уровне стриктуры и успешной энуклеации локализованного сегмента эктопической хрящевой ткани [6, 7]. Циркулярную миомэктомию с восстановлением непрерывности мышечного слоя выполняют с сохранением неповреждённой слизистой оболочки, что теоретически снижает риск такого грозного осложнения, как несостоятельность анастомоза [37]. В качестве альтернативы сегментарной резекции при фибромускулярном утолщении стенки пищевода может быть применима продольная миотомия [11]. Продольная миотомия в данном случае может быть выполнена аналогично лапароскопической миотомии по Геллеру при ахалазии, что позволяет выполнить фундопликацию, восстановить функцию пищеводного отверстия диафрагмы и обеспечить эффективное энтеральное питание [2, 11]. При мембранах слизистой оболочки, рефрактерных к эндоскопическому лечению,

также рекомендуется выполнение резекции. Однако в некоторых случаях мембрана может быть иссечена при продольной эзофаготомии без сегментарной резекции. Наиболее часто используемым доступом является левосторонняя торакотомия, поскольку в подавляющем большинстве случаев стенозы локализуются в дистальном отделе пищевода [7]. Реже используют трансабдоминальный/транسخиатальный доступы. Ряд авторов отмечает высокую эффективность торакоскопической резекции и считает, что этот подход способствует визуализации и сохранению блуждающего нерва при сегментарной эзофаготомии [17, 29].

Осложнения хирургического лечения включают несостоятельность и стеноз анастомоза, грыжу пищеводного отверстия диафрагмы и рефлюкс-эзофагит [20, 28, 60]. Риск несостоятельности анастомоза выше у пациентов, которые поступали на операцию в состоянии алиментарного истощения [28, 60]. По данным L. Michaud и соавт., сохранение симптомов дисфагии после проведенного лечения отмечалось у 66% (5/9) пациентов, перенесших только хирургическое лечение, и у 73% (9/11) пациентов, перенесших оперативное вмешательство после попытки эндоскопической дилатации [28]. Исследователи пришли к выводу, что сохранение симптомов обусловлено нарушением моторики пищевода. Сведение о манометрии пищевода в послеоперационном периоде у таких пациентов в литературе малочисленны, но они могут оказаться ценными для определения отдаленных результатов лечения [11].

В доступной литературе мы не нашли исследований, посвященных прямому сравнению открытой и малоинвазивной хирургии при ВСП. Однако на основании проведенного обзора можно сделать вывод, что малоинвазивное эндоскопическое лечение может быть успешно проведено при ВСП, в том числе, и при хрящевом рудиментарном типе. Однако риск перфорации при малоинвазивном лечении наиболее высок при хрящевом рудиментарном типе ВСП. ЭУС в предоперационном обследовании имеет большое значение для определения типа стеноза и может быть выполнена одновременно с эндоскопическим исследованием. Решение о виде лечения при хрящевом рудиментарном типе должно приниматься междисциплинарной командой врачей на основании индивидуальных особенностей пациента, имеющегося опыта специалистов и наличия необходимого оборудования в клинике. И все-таки, большинство исследователей при хрящевом рудиментарном типе сегодня отдают предпочтение стандартному хирургическому лечению.

Имеющиеся на настоящий момент литературные данные недостаточны для определения наиболее предпочтительного способа эндоскопического лечения. Интересной областью для будущих исследований может стать определение корреляции степени выраженности хрящевой ткани, визуализируемой при эндосонографии, с частотой успешной эндоскопической дилатации стеноза.

Заключение

Стенозы пищевода в детском возрасте являются довольно распространённым заболеванием, характеризующимся различной этиологией, специфической клинической картиной, широким дифференциальным рядом и многообразием в подходах к лечению. В настоящее время все большую популярность приобретают малоинвазивные методы лечения, среди которых эндоскопический подход к лечению стенозов пищевода выходит на первый план ввиду отмеченной безопасности и эффективности. Дополнение малоинвазивного эндоскопического лечения локальным применением митомицина С представляется

перспективным в профилактике и лечении рецидивирующих стенозов пищевода у детей и может стать альтернативой хирургическому вмешательству, стентированию или множественным повторным дилатациям при рецидивах заболевания. Хирургическое лечение сохраняет свое значение при неэффективности малоинвазивных методов и особенно при развитии осложнений, наиболее грозным из которых является перфорация пищевода.

Таким образом, диагностика и лечение стенозов пищевода у детей – это серьёзная задача, которая требует комплексного персонифицированного подхода мультидисциплинарной команды в условиях специализированного стационара при наличии соответствующего оборудования и опыта.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 1–16, 17, 18, 20–60 см. в References)

17. Разумовский А.Ю., Алхасов А.Б., Гандуров С.Г. Пептические стенозы пищевода у детей. *Детская хирургия*. 2005; 2: 39-41.
19. Королёв М.П., Гольбиц С.В., Иванов А.П., Комиссаров М.И. Эндоскопическое лечение детей со стенозами пищевода различной этиологии. *Вестник хирургии*. 2012; 2: 52-7.

REFERENCES

1. Nihoul-Fekete C., De Backer A., Lortat-Jacob S., Pellerin D. Congenital esophageal stenosis, a review of 20 cases. *Pediatr Surg Int*. 1987; 2: 86–92.
2. Romeo E., Foschia F., De Angelis P., et al. Endoscopic management of congenital esophageal stenosis. *J Pediatr Surg*. 2011; 46(5): 838–41.
3. Dall'Oglio L., Caldaro T., Foschia F., Faraci S., Federici di Abriola G., Rea F., Romeo E., Torroni F., Angelino G., De Angelis P. Endoscopic management of esophageal stenosis in children: New and traditional treatments. *World J Gastrointest Endosc*. 2016; 8(4): 212–9.
4. Saleem M.M. Acquired oesophageal strictures in children: emphasis on the use of string-guided dilatations. *Singapore Med J*. 2009 Jan; 50(1): 82-6.
5. Terui K., Saito T., Mitsunaga T., Nakata M., Yoshida H. Endoscopic management for congenital esophageal stenosis: A systematic review. *World J Gastrointest Endosc*. 2015 Mar 16; 7(3): 183-91.
6. Amae S., Nio M., Kamiyama T., Ishii T., Yoshida S., Hayashi Y., et al. Clinical characteristics and management of congenital esophageal stenosis: a report on 14 cases. *J Pediatr Surg*. 2003; 38(4): 565-70.
7. Takamizawa S., Tsugawa C., Mouri N., Satoh S., Kanegawa K., Nishijima E., Muraji T. Congenital esophageal stenosis: Therapeutic strategy based on etiology. *J Pediatr Surg*. 2002 Feb; 37(2): 197-201.
8. Dominguez R., Zarabi M., Oh K.S., Bender T.M., Girdany B.R. Congenital oesophageal stenosis. *Clin Radiol*. 1985 May; 36(3): 263-6.
9. Ishida M., Tsuchida Y., Saito S., Tsunoda A. Congenital esophageal stenosis due to tracheobronchial remnants. *J Pediatr Surg*. 1969; 4(3): 339–45.
10. Nishina T., Tsuchida Y., Saito S. Congenital esophageal stenosis due to tracheobronchial remnants and its associated anomalies. *J Pediatr Surg*. 1981 Apr; 16(2): 190-3.
11. Kawahara H., Imura K., Yagi M., Kubota A. Clinical characteristics of congenital esophageal stenosis distal to associated esophageal atresia. *Surgery*. 2001 Jan; 129(1): 29-38.
12. Nemolato S., De Hertogh G., Van Eyken P., Faa G., Geboes K. Oesophageal tracheobronchial remnants. *Gastroenterol Clin Biol*. 2008 Aug-Sep; 32(8-9): 779-81.
13. Jones D.W., Kunisaki S.M., Teitelbaum D.H., Spigland N.A., Coran A.G. Congenital esophageal stenosis: the differential diagnosis and management. *Pediatr Surg Int*. 2010 May; 26(5): 547-51.
14. Takayanagi K., Ii K., Komi N. Congenital esophageal stenosis with lack of the submucosa. *J Pediatr Surg*. 1975 Jun; 10(3): 425-6.
15. McNally P.R., Lemon J.C., Goff J.S., Freeman S.R. Congenital esophageal stenosis presenting as noncardiac, esophageal chest pain. *Dig Dis Sci*. 1993 Feb; 38(2): 369-73.
16. Yoo H.J., Kim W.S., Cheon J.E., Yoo S.Y., Park K.W., Jung S.E., Shin S.M., Kim I.O., Yeon K.M. Congenital esophageal stenosis associated with esophageal atresia/tracheoesophageal fistula: clinical and radiologic features. *Pediatr Radiol*. 2010 Aug; 40(8): 1353-9.

17. Razumovsky A.Yu., Alkhasov A.B., Gandurov S.G. Peptic esophageal stenosis in children. *Det'skaya Khirurgiya*. 2005; 2: 39-41. (in Russian)
18. Pieczarkowski S., Woynarowski M., Landowski P., Wilk R., Daukszewicz A., Toporowska-Kowalska E., Albrecht P., Ignys I., Czkwi-
ananc E., Jarocka-Cyrta E., Korczowski B. Endoscopic therapy of
oesophageal strictures in children - a multicentre study. *Prz Gastro-
enterol*. 2016; 11(3): 194-9.
19. Korolev M.P., Golbits S.V., Ivanov A.P., Komissarov M.I. Endoscop-
ic treatment of children with esophagus stenoses of different etiology
Vestnik hirurgii. 2012; 2: 52-7. (in Russian)
20. Said M., Mekki M., Golli M., et al. Balloon dilatation of anastomot-
ic strictures secondary to surgical repair of oesophageal atresia. *Br J
Radiol*. 2003; 76: 26-31.
21. Parolini F., Leva E., Morandi A., Macchini F., Gentilino V., Di Cesa-
re A., Torricelli M. Anastomotic strictures and endoscopic dilata-
tions following esophageal atresia repair. *Pediatr Surg Int*. 2013 Jun;
29(6): 601-5.
22. Zhao R., Li K., Shen C., Zheng S. The outcome of conservative treat-
ment for anastomotic leakage after surgical repair of esophageal atresia.
J Pediatr Surg 2011; 46(12): 2274-8.
23. Murphy S.G., Yazbeck S., Russo P. Isolated congenital esophageal
stenosis. *J Pediatr Surg*. 1995 Aug; 30(8): 1238-41.
24. Achildi O., Grewal H. Congenital anomalies of the esophagus.
Otolaryngol Clin North Am. 2007 Feb; 40(1): 219-44.
25. Prasse J.E., Kikano G.E. An overview of pediatric dysphagia. *Clin
Pediatr (Phila)*. 2009 Apr; 48(3): 247-51.
26. Hurtado C.W., Furuta G.T., Kramer R.E. Etiology of esophageal
food impactions in children. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2011 Jan;
52(1): 43-6.
27. Savino F., Tarasco V., Viola S., Locatelli E., Sorrenti M., Barabino A.
Congenital esophageal stenosis diagnosed in an infant at 9 month of
age. *Ital J Pediatr*. 2015 Oct 6; 41:72.
28. Michaud L., Coutenier F., Povedin G., Bonnard A., Becmeur F.,
Khen-Dunlop N., Auber F., Maurel A., Gelas T., Dassonville M.,
Borderon C., Dabadie A., Weil D., Piolat C., Breton A., Djeddi D.,
Morali A., Bastiani F., Lamireau T., Gottrand F. Characteristics and
management of congenital esophageal stenosis: findings from a mul-
ticenter study. *Orphanet J Rare Dis*. 2013 Dec 1; 8: 186.
29. Quiros J.A., Hirose S., Patino M., Lee H. Esophageal tracheobron-
chial remnant, endoscopic ultrasound diagnosis, and surgical man-
agement. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2013 Mar; 56(3): e14.
30. Lew R.J., Kochman M.L. A review of endoscopic methods of esopha-
geal dilation. *J Clin Gastroenterol*. 2002 Aug; 35(2): 117-26.
31. Lan L.C., Wong K.K., Lin S.C., Sprigg A., Clarke S., Johnson P.R.,
Tam P.K. Endoscopic balloon dilatation of esophageal strictures in
infants and children: 17 years' experience and a literature review. *J
Pediatr Surg*. 2003 Dec; 38(12): 1712-5.
32. Lakhdar-Idrissi M., Khabbache K., Hida M. Esophageal endo-
scopic dilations. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2012 Jun; 54(6):
744-7.
33. Shehata S.M., Enaba M.E. Endoscopic dilatation for benign oesoph-
ageal strictures in infants and toddlers: experience of an expectant
protocol from North African tertiary centre. *Afr J Paediatr Surg*.
2012 Sep-Dec; 9(3): 187-92.
34. Van der Zee D., Hulsker C. Indwelling esophageal balloon catheter
for benign esophageal stenosis in infants and children. *Surg Endosc*.
2014 Apr; 28(4): 1126-30.
35. Khanna S., Khanna S. Management of benign oesophageal strictures
in children. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2008 Sep; 60(3):
218-22.
36. Hsieh K.H., Soong W.J., Jeng M.J., Lee Y.S., Tsao P.C., Chou Y.L.
Flexible endoscopic diagnosis and treatment of esophageal stenosis
in children with noninvasive ventilation support. *Pediatr Neonatol*.
2018 Feb; 59(1): 31-4.
37. Saito T., Ise K., Kawahara Y., Yamashita M., Shimizu H., Suzuki H.,
Gotoh M. Congenital esophageal stenosis because of tracheobron-
chial remnant and treated by circular myectomy: a case report.
J Pediatr Surg. 2008 Mar; 43(3): 583-5.
38. Serhal L., Gottrand F., Sfeir R., Guimber D., Devos P., Bonneville
M., Storme L., Turck D., Michaud L. Anastomotic stricture after
surgical repair of esophageal atresia: frequency, risk factors, and ef-
ficacy of esophageal bougie dilatations. *J Pediatr Surg*. 2010 Jul;
45(7): 1459-62.
39. Türkyilmaz Z., Sönmez K., Demirtola A., Karabulut R., Poyraz A.,
Gülen S., Dinçer S., Başaklar A.C., Kale N. Mitomycin C prevents
strictures in caustic esophageal burns in rats. *J Surg Res*. 2005 Feb;
123(2): 182-7.
40. Gillespie M.B., Day T.A., Sharma A.K., Brodsky M.B., Martin-
Harris B. Role of mitomycin in upper digestive tract stricture. *Head
Neck*. 2007 Jan; 29(1): 12-7.
41. Jang C.H., Song C.H., Pak S.C. Effect of exposure to mitomycin C
on cultured tympanic membrane fibroblasts. *Int J Pediatr Otorhino-
laryngol*. 2003 Feb; 67(2): 173-6.
42. Mearza A.A., Aslanides I.M. Uses and complications of mitomycin
C in ophthalmology. *Expert Opin Drug Saf*. 2007 Jan; 6(1): 27-32.
43. Günel E., Çağlayan F., Çağlayan O., Canbilen A., Tosun M. Effect
of antioxidant therapy on collagen synthesis in corrosive esophageal
burns. *Pediatr Surg Int*. 2002 Jan; 18(1): 24-7.
44. Uhlen S., Fayoux P., Vachin F., Guimber D., Gottrand F., Turck D.,
Michaud L. Mitomycin C: an alternative conservative treatment for
refractory esophageal stricture in children? *Endoscopy*. 2006 Apr;
38(4): 404-7.
45. Berger M., Ure B., Lacher M. Mitomycin C in the therapy of recur-
rent esophageal strictures: hype or hope? *Eur J Pediatr Surg*. 2012
Apr; 22(2): 109-16.
46. Rustagi T., Aslanian H.R., Laine L. Treatment of Refractory Gastro-
intestinal Strictures With Mitomycin C: A Systematic Review. *J Clin
Gastroenterol*. 2015 Nov-Dec; 49(10): 837-47.
47. Ley D., Bridenne M., Gottrand F., Lemale J., Hauser B., Lachaux A.,
Reboussoux L., Viala J., Fayoux P., Michaud L. Efficacy and Safety
of the Local Application of Mitomycin C to Recurrent Esophageal
Strictures in Children. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2019 Nov; 69(5):
528-32.
48. El-Asmar K.M., Hassan M.A., Abdelkader H.M., Hamza A.F. Topi-
cal mitomycin C application is effective in management of localized
caustic esophageal stricture: a double-blinded, randomized, placebo-
controlled trial. *J Pediatr Surg*. 2013 Jul; 48(7): 1621-7.
49. Sweed A.S., Fawaz S.A., Ezzat W.F., Sabri S.M. A prospective con-
trolled study to assess the use of mitomycin C in improving the re-
sults of esophageal dilatation in post corrosive esophageal stricture
in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2015 Jan; 79(1): 23-5.
50. Spaander M.C., Baron T.H., Siersema P.D., Fuccio L., Schumacher B.,
Escorsell À., Garcia-Pagán J.C., Dumonceau J.M., Conio M., de Ce-
glie A., Skowronek J., Nordmark M., Seufferlein T., Van Gossum A.,
Hassan C., Repici A., Bruno M.J. Esophageal stenting for benign and
malignant disease: European Society of Gastrointestinal Endoscopy
(ESGE) Clinical Guideline. *Endoscopy*. 2016 Oct; 48(10): 939-48.
51. Tringali A., Thomson M., Dumonceau J.M., et al. Pediatric gastro-
intestinal endoscopy: European Society of Gastrointestinal Endo-
scopy (ESGE) and European Society for Paediatric Gastroenterology
Hepatology and Nutrition (ESPGHAN) Guideline Executive summary.
Endoscopy. 2017; 49(1): 83-91
52. Rosseneu S., Afzal N., Yerushalmi B., Ibraguen-Secchia E., Lewindon P.,
Cameron D., Mahler T., Schwagten K., Köhler H., Lindley K.J.,
Thomson M. Topical application of mitomycin-C in oesophageal stric-
tures. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2007 Mar; 44(3): 336-41.
53. Kujawski K., Stasiak M., Rysz J. The evaluation of esophageal
stenting complications in palliative treatment of dysphagia related
to esophageal cancer. *Med Sci Monit*. 2012 May; 18(5): CR323-9.
54. Vandeplass Y., Hauser B., Devreker T., Urbain D., Reynaert H. A
biodegradable esophageal stent in the treatment of a corrosive esopha-
geal stenosis in a child. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2009 Aug;
49(2): 254-7.
55. Kochhar R., Poornachandra K.S. Intralesional steroid injection
therapy in the management of resistant gastrointestinal strictures. *World
J Gastrointest Endosc*. 2010 Feb 16; 2(2): 61-8.
56. Alshammari J., Quesnel S., Pierrot S., Couloigner V. Endoscopic
balloon dilatation of esophageal strictures in children. *Int J Pediatr
Otorhinolaryngol*. 2011 Nov; 75(11): 1376-9.
57. Jawad A.J., Al-Samarrai A.I., Al-Rabeeh A., Al-Rashed R. The
management of esophageal strictures in children. *Ann Saudi Med*.
1995 Jan; 15(1): 43-7.
58. Agrawal N., Morrison G.A. Laryngeal cancer after topical mitomycin
C application. *J Laryngol Otol*. 2006 Dec; 120(12): 1075-6.
57. Jawad A.J., Al-Samarrai A.I., Al-Rabeeh A., Al-Rashed R. The
management of esophageal strictures in children. *Ann Saudi Med*.
1995 Jan; 15(1): 43-7.
59. Jayasekera C.S., Desmond P.V., Holmes J.A., Kitson M., Taylor A.C.
Cluster of 4 cases of esophageal squamous cell cancer developing in
adults with surgically corrected esophageal atresia-time for screen-
ing to start. *J Pediatr Surg*. 2012 Apr; 47(4): 646-51.
60. Brzački V., Mladenović B., Jeremić L., Živanović D., Govedarović N.,
Dimić D., Golubović M., Stoickov V. Congenital esophageal
stenosis: a rare malformation of the foregut. *Nagoya J Med Sci*. 2019
Nov; 81(4): 535-47.

КЛИНИЧЕСКАЯ ПРАКТИКА

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2021

Страшинский А.С.¹, Стальмахович В.Н.², Кайгородова И.Н.¹, Ли И.Б.¹**Врождённая кистозно-аденоматозная мальформация нижней доли левого лёгкого в сочетании с интралобарной секвестрацией лёгкого**¹ГБУЗ «Иркутская государственная областная детская клиническая больница», 664022, г. Иркутск, Россия;²Иркутская государственная академия последипломного образования – филиал ФГБОУ ДПО «Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 664049, г. Иркутск, Россия

Введение. Сочетание двух редких врождённых заболеваний лёгких – врождённой кистозно-аденоматозной мальформации нижней доли левого лёгкого с интралобарной секвестрацией лёгкого – крайне редко встречается во врачебной практике.

Материал и методы. В статье описан случай успешного лечения ребёнка в возрасте 8 лет с кистозно-аденоматозной трансформацией нижней доли левого лёгкого в сочетании с интралобарной секвестрацией. У ребёнка с хронической пневмонией при выполнении МСКТ органов грудной клетки с внутривенным контрастированием было выявлено сочетание кистозно-аденоматозной мальформации с интралобарной секвестрацией лёгкого. Кровоснабжение секвестра обеспечивалось артерией из грудного отдела аорты, а широкая вена уходила в сторону противоположного гемиторакса и впадала в непарную вену. Пациенту проведено плановое оперативное вмешательство: левосторонняя боковая торакотомия, нижняя лобэктомия с перевязкой дополнительных сосудов.

Результаты. Ранний послеоперационный период проходил без осложнений. В течение последующего года обострений пневмонии у ребенка не отмечалось. Считает себя здоровым. Гистологическое заключение № 31568–31577 подтвердило наличие кистозно-аденоматозной мальформации II типа с секвестрацией лёгкого.

Заключение. Использование возможностей современных методов обследования позволило поставить точный диагноз на дооперационном этапе. Знание особенностей кровотока способствовало профилактике возможных интраоперационных осложнений.

Ключевые слова: кистозная дисплазия лёгкого; дети

Для цитирования: Страшинский А.С., Стальмахович В.Н., Кайгородова И.Н., Ли И.Б. Врождённая кистозно-аденоматозная мальформация нижней доли левого лёгкого в сочетании с интралобарной секвестрацией лёгкого. *Детская хирургия.* 2021; 25(4): 274-277. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-274-277>

Для корреспонденции: Стальмахович Виктор Николаевич, доктор мед. наук, проф., зав. кафедрой детской хирургии ИГМАПО – филиал ФГБОУ ДПО РМАНПО МЗ РФ, 664022, г. Иркутск. E-mail: Stal.irk@mail.ru

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Стальмахович В.Н. – концепция и дизайн исследования, редактирование; Страшинский А.С. – статистическая обработка, написание текста; Кайгородова И.Н. – сбор и обработка материала; Ли И.Б. – иллюстрации. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 28 апреля 2021

Принята в печать 05 июня 2021

Strashinski A.S.¹, Stalmakhovich V.N.², Kaygorodova I.N.¹, Li I.B.¹**Congenital cystic-adenomatous malformations of the lower lobe of the left lung in combination with intralobar pulmonary sequestration**¹Irkutsk State Regional Children's Clinical Hospital, Irkutsk, 664022, Russia;²Irkutsk State Academy of Postgraduate Education, Irkutsk, 664049, Russia

Introduction. A combination of two rare congenital lung diseases - congenital cystic-adenomatous malformation of the lower lobe of the left lung and intralobar sequestration of the lung - is an extremely rare pathology in medical practice.

Material and methods. The article describes a case of successful treatment of an 8-year-old child with cystic-adenomatous transformation of the lower lobe of the left lung in combination with intralobar sequestration. A child with chronic pneumonia was prescribed CT of his chest organs with intravenous contrast enhancement. A combination of cystic adenomatous malformation with intralobar sequestration of the lung was revealed at this examination. The sequestration zone was supplied with blood via the artery from the thoracic aorta, and the wide vein went towards the opposite hemithorax and flowed into the azygos vein. The patient had a planned surgery: left-sided lateral thoracotomy, lower lobectomy with ligation of additional vessels.

Results. The early postoperative period was uneventful. Next year, there were no exacerbations of pneumonia. The child considers himself healthy. The histological report No. 31568 - 31577 confirmed type II cystic adenomatous malformation with sequestration of the lung.

Conclusion. Modern diagnostic tools allow to put a correct diagnosis at the preoperative stage. In the described case, possible intraoperative complications were avoided because surgeons knew specific blood supply in the diseased area before surgery.

Key words: cystic dysplasia of lungs; children

For citation: Strashinski A.S., Stalmakhovich V.N., Kaygorodova I.N., Li I.B. Congenital cystic-adenomatous malformations of the lower lobe of the left lung in combination with intralobar pulmonary sequestration. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 274-277. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-274-277> (In Russian)

For correspondence: Viktor N. Stalmakhovich, MD, Dr.Sc.(med), professor, head of department of pediatric surgery in the Irkutsk State Academy of Postgraduate Education, Irkutsk, 664049, Russia. E-mail: Stal.irk@mail.ru

Information about authors:

Stalmakhovich V.N., <https://orcid.org/0000-0002-4885-123X>;
Kaygorodova I.N., <https://orcid.org/0000-0002-2332-9285>;

Strashinskii A.S., <https://orcid.org/0000-0002-1911-4468>
Li I.B., <https://orcid.org/0000-0003-1979-4616>

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: Stalmakhovich V.N. – the concept and design of the study, editing; Strashinski A.S. – statistical analysis, writing a text; Kaygorodova I.N. – the collection and processing of the material; Li I.B. – illustrations. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: April 08, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

Врождённая кистозно-аденоматозная мальформация лёгкого (ВКАМЛ) представляет собой поликистозное образование, возникающее в связи с гиперпролиферацией и дилатацией терминальных бронхиол и нарушением развития альвеол. Участок мальформации сообщается с трахеобронхиальным деревом и может быть рассмотрен как нефункционирующая, изменённая, дополнительная доля лёгкого [1–3]. В более чем 85% случаев кистозные мальформации располагаются унилатерально в одной из долей лёгкого, чаще левого (в 60% случаев) [4, 5].

Понятие «врождённая кистозно-аденоматозная мальформация лёгкого» сходно с понятием «бронхопульмональный секвестр» по механизмам развития и возможным последствиям для ребёнка. Но следует принимать во внимание, что в одном случае кровоснабжение отделёвшегося участка лёгочной ткани осуществляется сосудом, берущим начало от лёгочной артерии, а в другом – из системного кровотока, т.е. из нисходящей аорты, реже из межреберной, селезёночной артерии или из чревного ствола (венозный отток осуществляется по непарной вене или нижней полой вене) [6–8].

Бронхопульмональный секвестр – образование, отграниченное от здоровой лёгочной ткани и не имеющее связи с трахеобронхиальным деревом. Принято различать интралобарный (75–86%) секвестр, находящийся среди нормальной лёгочной ткани, и экстралобарный (14–25%), покрытый собственной висцеральной плеврой [9–13]. Данная аномалия составляет от 0,15 до 6,4% от всех врождённых патологий; порядка 2,5% внелёгочных секвестров располагаются ниже диафрагмы [14]. Врождённый бронхо-пульмональный секвестр может сочетаться с такими пороками, как врождённая диафрагмальная грыжа, ВКАМЛ, врождённая лобарная эмфизема, бронхогенные кисты, пороки развития сердца.

Клинические проявления заболевания зависят от обширности патологических изменений в лёгких. Заболевание может проявиться дыхательной недостаточностью в период новорождённости или быть случайной находкой при лучевых методах обследования у детей грудного и более старшего возраста. В последние годы отмечается высокий процент антенатальной диагностики заболевания [15, 16].

Материал и методы

Больной М. (19.12.2011 г. р.) находился на лечении в отделении хирургии Областной детской больницы г. Иркутска с 12.03.2020 по 30.03.2020 г. Диагноз при поступлении: кистозно-аденоматозная трансформация нижней доли левого лёгкого. Анамнез заболевания: в возрасте 2 мес ребёнок заболел пневмонией, которая

имела затяжной характер. В возрасте 9 мес ему выполнена операция – лигирование открытого артериального протока. В последующие 8 лет жизни пневмонией болел по 3–4 раза в год. Во время очередного заболевания в 2020 г. при рентгенологическом обследовании выявлена интенсивная инфильтрация в нижней части левого гемоторакса. В центральной районной больнице по месту жительства установлен диагноз диафрагмальной грыжи и ребёнок направлен на лечение в Областную детскую больницу города Иркутска.

Результаты

В процессе обследования было проведено МСКТ органов грудной клетки: в паренхиме нижней доли, максималльно в заднемедиальных отделах визуализируются множественные тонкостенные воздушные полости (–938 ед.Х) размером от 0,3 до 2,1 см. Перифокально паренхима неоднородной воздушности с очагами по типу «матового стекла» (2619 ед.Х) и множественными очагами пневмофиброза (от 61 до 123 ед.Х) (рис. 1, а, б). Архитектоника лёгочных долек с грубой сетчатой деформацией. Участки сохранной паренхимы обычных денситометрических показателей визуализируются в верхних отделах S6, передних отделах S8 и заднебоковых отделах S9. На фоне данных изменений в заднемедиальных отделах нижней доли визуализируется участок безвоздушной паренхимы (60–130 ед.Х), в толще которого проходят аномальные сосуды и множественные расширенные сближенные просветы бронхов. При внутривенном контрастировании сосудов выявлена широкая *Vena azygos* (до 0,9 мм). В области участка фиброза в заднемедиальных отделах и между кистозными полостями нижней доли левого лёгкого визуализируются расширенные, извитые артериальные и венозные сосуды. Аномальные венозные сосуды, сливаясь, выходят из патологического участка лёгкого дополнительным расширенным сосудом (диаметром до 7,0 мм), который, перекидываясь через позвоночный столб вправо, дренируется на уровне Th10 в *venae azygos* (рис. 2, а, б). Аномальные сосуды тремя дополнительными крупными артериальными сосудами (диаметром от 3,9 до 5,8 мм) отходят от нисходящей части грудной аорты на уровне Th9–Th10. Заключение: ВПР. Кистозная дисплазия нижней доли левого лёгкого с интралобарной секвестрацией.

МСКТ с в/в усилением помогло уточнить сочетание одного порока развития лёгких с другим, что позволило выбрать правильную тактику при оперативном вмешательстве: целенаправленно выйти на сосуды, питающие лёгочной секвестр, и предотвратить потенциально возможное кровотечение. Во время операции (торакотомия, лобэктомия) установлено, что в плевральной полости слева – массивный спаечный процесс после



Рис. 1. МСКТ лёгких без внутривенного контрастирования сосудов. Кистозно-аденоматозная трансформация нижней доли левого лёгкого. Фронтальный (а) и поперечный (б) срезы.

Fig. 1. CT of the lungs without intravenous vascular contrasting. Cystic-adenomatous transformation of the lower lobe of the left lung. Frontal (a) and transverse (b) sections.

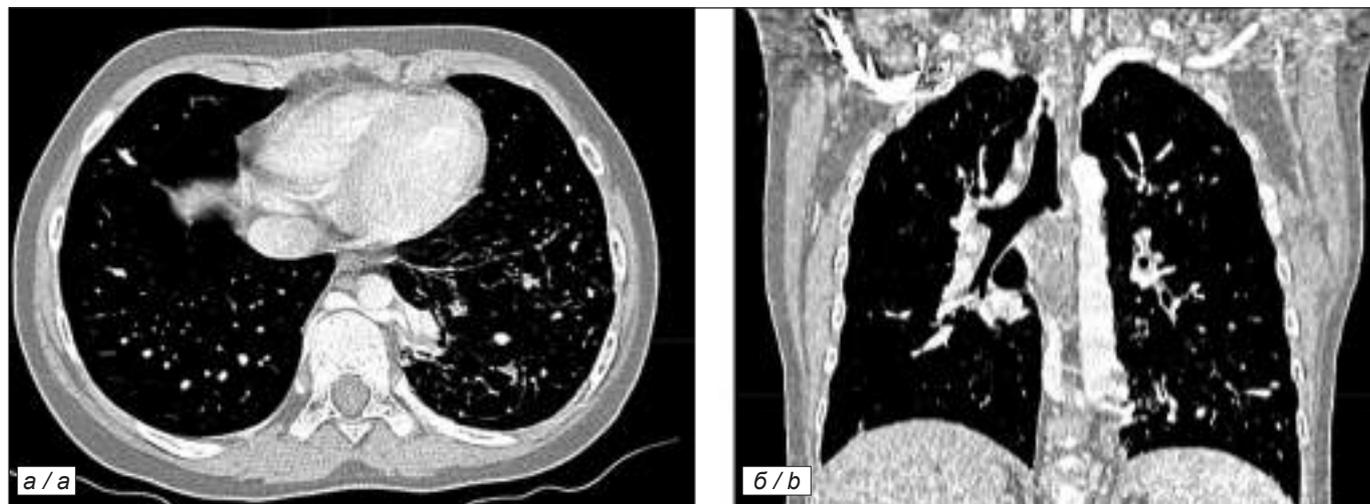


Рис. 2. МСКТ легких с внутривенным усилением. Интралобарная секвестрация с аномальным кровоснабжением из нижней части грудного отдела аорты – а и оттоком крови в непарную вену (v. azigos) – б.

Fig. 2. CT of the lungs with intravenous enhancement. Intralobar sequestration with abnormal blood supply from the lower part of the thoracic aorta – a and outflow of blood into the azygos vein (v. Azigos) – b.

ранее перенесённой торакотомии (лигирование ОАП, ревизия грудной аорты, 2012 г.). Проведён пневмолиз. Нижняя доля уменьшена в размерах с множеством кистозных образований в паренхиме. При мобилизации доли выявлено, что базальномедиальные сегменты имеют отдельное кровоснабжение: достаточно крупный артериальный ствол от аорты, широкая вена к v. *azigos*, которые были дважды лигированы и отсечены. Проведена нижняя лобэктомия с использованием сшивающего аппарата.

Ранний послеоперационный период – без осложнений. В течение последующего года обострений пневмонии у ребёнка не отмечалось. Считает себя здоровым.

Гистологическое заключение № 31568–31577 подтвердило наличие кистозно-аденоматозной мальформации II типа с секвестрацией лёгкого.

Заключение

Представленное клиническое наблюдение свидетельствует о сложности ранней диагностики порока развития лёгких на основании клинической картины и обычной рентгенограммы органов грудной клетки. Только проведение МСКТ лёгких с внутривенным усилением позволяет детализировать особенности патологии органов и правильно определить объём и этапность оперативного пособия с профилактикой интраоперационных осложнений.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 1–14 см. в References)

14. Ильина Н.А., Мягкова И.Е. Компьютерно-томографическая ангиография в дифференциальной диагностике экстралобарной секвестрации легких у новорожденных. *Регионарное кровообращение и микроциркуляция*. 2015; 14(1-53): 26-31.
15. Разумовский А.Ю., Шарипов А.М., Батаеви С.-Х.М. и соавт. Мини-инвазивная хирургия в лечении детей с кистозно-аденоматозной мальформацией легких. *Детская хирургия*. 2013; (2): 4-8.
16. Mashkov A.E., Shcherbina V.I., Stashuk G.A., Slesarev V.V., Gaganov L.E., Druzyuk E.Z., Vinokurova E.N. Диагностика и лечение кистозно-аденоматозной мальформации легких у детей. *Детская хирургия*. 2017; 21(1): 23-7. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2017-21-1-23-27>

REFERENCES

1. Mallmann M.R., Geipel A., Bludau M., Matil K., Gottschalk I., Hoopmann M., Uller A.M., Bachour H., Heydweiller A., Gembruch U., Berg C. Bronchopulmonary sequestration with massive pleural effusion: pleuroamniotic shunting vs intrafetal vascular laser ablation. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2014; 44(4): 441-6. DOI: 10.1002/uog.13304
2. Fan D., Xia Q., Wu S., Liu L., Yu Z., Wang W., Wu S., Guo X., Liu Z. Prevalence of prenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid malformation among fetuses in China. *Oncotarget*. 2017; 8(45): 79587-93. DOI: 10.18632/oncotarget.18579.
3. Lanzoni M., Morris J., Loane M., Garne E., Kinsner-Ovaskainen A. *JRC-EUROCAT Report on Statistical Monitoring of Congenital Anomalies (2006-2015)*. Luxembourg: Publications Office of the European Union; 2017, 88.
4. Stocker L.J., Wellesley D.G., Stanton M.P., Parasuraman R., Howe D.T. The increasing incidence of foetal echogenic congenital lung malformations: an observational study. *Prenat Diagn*. 2015; 35(2): 148-53. DOI: 10.1002/pd.4507.
5. Sugibayashi R., Ozawa K., Wada S., Sago H. The prenatal diagnosis and outcomes of fetal lung cystic lesions: 100 cases at a single center. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2017; 50(1): 248. DOI: 10.1002/uog.18285.
6. Cruz-Martinez R., Martinez-Rodriguez M., Bermudez-Rojas M., Magana-Abarca C., Rojas-Macedo A., Alcocer-Alcocer M. Fetal surgery by full laser ablation of the feeding artery for cystic lung lesions with systemic arterial blood supply (hybrid lung lesions). *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2017; 49(6): 744-50. DOI: 10.1002/uog.16011.
7. Cruz-Martinez R., Nieto-Castro B., Martinez-Rodriguez M., Narvaez-Dominguez V.E., Gamez-Varela A.K., Snieszkin P., Rojas-Macedo A., Alcocer-Alcocer M. Pulmonary outcome of children with brochopulmonary sequestration treated prenatally by laser ablation of the feeding artery: a prospective two-year follow-up. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2016; 48(1): 359. DOI:10.1002/uog.17092
8. David M., Lamas-Pinheiro R., Henriques-Coelho T. Prenatal and Postnatal Management of Congenital Pulmonary Airway Malformation. *Neonatology*. 2016; 110(2): 101-15. DOI: 10.1159/000440894.
9. Durell J., Lakhoo K. Updates in: congenital lung lesions. *Journal of Pediatric Surgical Specialties*. 2016; 10(3): 20-5.
10. Franko J., Bell K., Pezzi C.M. Intraabdominal pulmonary sequestration. *Curr Surg*. 2006; 63(1): 35-8. DOI: 10.1016/j.cursur.2005.04.004.
11. Gottschalk I., Strizek B., Mallmann M.R., Müller A., Geipel A., Gembruch U., Klaritsch P., Csapo B., Berg C. Outcome of bronchopulmonary sequestration with massive pleural effusion after intrafetal vascular laser ablation. *Fetal Diagn Ther*. 2018; 44(2): 149-55. DOI: 10.1159/000479793.
12. Neito-Zermeno J., Malagon-Salszar P., Medina-Noyola C., Rebollo-Fernandez C. Fetal laser surgery prevents fetal death and avoids the need for neonatal sequestrectomy in cases with bronchopulmonary sequestration. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2015; 46(5): 627-8. DOI: 10.1002/uog.14921.
13. Peranteau W.H., Adzick N.S., Boelig M.M., Flake A.W., Hedrick H.L., Howell L.J., Moldenhauer J.S., Khalek N., Martinez-Poyer J., Johnson M.P. Thoracoamniotic shunt for the management of fetal lung lesions and pleural effusions: a single-institution review and predictors of survival in 75 cases. *J Pediatr Surg*. 2015; 50(2): 301-5. DOI: 10.1016/j.jpedisurg.2014.
14. Ilina N.A., Myagkova I.E. Computed tomographic angiography in the differential diagnosis of extralobar lung sequestration in newborns. *Regionarnoe krovoobrashchenie i mikrocykulyaciya*. 2015; 14(1-53): 26-31.
15. Razumovsky A.Yu., Sharipov A.M., Bataevi S.-Kh.M. other. Mini-invasive surgery in the treatment of children with cystic adenomatous malformation of the lungs. *Detskaya khirurgiya*. 2013; (2): 4-8. (in Russian)
16. Mashkov A.E., Shcherbina V.I., Stashuk G.A., Slesarev V.V., Gaganov L.E., Druzyuk E.Z., Vinokurova E.N. Diagnosis and treatment of cystic adenomatous malformation of the lungs in children. *Detskaya khirurgiya*. 2017; 21 (1): 23-7. <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2017-21-1-23-27> (in Russian)

Мальшева Д.А., Сухоцкая А.А., Баиров В.Г., Каганцов И.М., Кохреидзе Н.А., Зазерская И.Е., Овсянников Ф.А.

Хирургические аспекты лечения неонатальных овариальных кист у девочек

ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр имени В.А. Алмазова»
Министерства здравоохранения Российской Федерации, 107341, г. Санкт-Петербург, Россия

Введение. Неонатальные овариальные кисты возникают в результате гормонального дисбаланса в системе мать-плацента-плод. Кистозная трансформация яичника угрожает развитием перекрута придатков, что приводит к некрозу фолликулов и потере овариального резерва. Чаще перекрут происходит внутриутробно, но у недоношенных девочек, в связи с особенностями гормонального статуса, риск роста кисты и перекрута сохраняется постнатально. В настоящее время единый подход к оперативному лечению неонатальных овариальных кист отсутствует.

Материал и методы. Всего в отделении детской хирургии пороков развития Перинатального центра НМИЦ им. В.А. Алмазова за период 2012–2020 гг. обследовано 34 девочки с овариальными кистами, из них 9 (27%) были недоношенными. В представленном наблюдении мы столкнулись с кистой яичника у плода 30 нед гестации.

Результаты. Киста выглядела неосложнённой, но достигала огромных размеров, в связи с чем обсуждался вопрос о проведении внутриутробной пункции кисты. Однако в связи с тяжёлой гемолитической болезнью плода, преждевременным родоразрешением, вмешательство не было осуществлено. К третьей неделе жизни произошёл перекрут кистозно-трансформированного яичника, интраоперационно выявлен состоявшийся некроз и самоампутация правых придатков матки, выполнено их удаление. К трём месяцам жизни развилась кистозная трансформация единственного яичника. Сохранить яичник позволила своевременно проведённая лапароскопическая фенестрация. Дальнейшее наблюдение за ребёнком показало сохранение и нормальный рост единственного яичника, что подтвердило обоснованность хирургической тактики.

Заключение. Всем девочкам, рождённым недоношенными, показано динамическое ультразвуковое исследование органов малого таза не реже одного раза в две недели (при возникновении кисты яичника – еженедельно). Считаем обоснованным проведение лапароскопической фенестрации неосложнённых кист, достигших размера 3 см и более. Ведение новорождённых девочек с кистами яичников должно проводиться совместно с детским гинекологом, что позволяет выработать индивидуальный план лечения и наблюдения.

Ключевые слова: кисты; яичник; новорождённые; недоношенные

Для цитирования: Мальшева Д.А., Сухоцкая А.А., Баиров В.Г., Каганцов И.М., Кохреидзе Н.А., Зазерская И.Е., Овсянников Ф.А. Хирургические аспекты лечения неонатальных овариальных кист у девочек. *Детская хирургия.* 2021; 25(4): 278-283. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-278-283>

Для корреспонденции: Мальшева Дарья Александровна, врач-детский хирург отделения детской хирургии пороков развития и приобретенной патологии для новорождённых и детей грудного возраста Перинатального центра Института перинатологии и педиатрии ФГБУ «НМИЦ им. В.А. Алмазова» МЗ РФ. 197341, г. Санкт-Петербург, Россия. E-mail: darmalysheva@gmail.com

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов
Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Мальшева Д.А. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, статистический анализ, написание текста (40%); Сухоцкая А.А., Баиров В.Г., Каганцов И.М., Кохреидзе Н.А., Зазерская И.Е., Овсянников Ф.А. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, статистический анализ (по 10%). Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 20 мая 2021
Принята в печать 05 июня 2021

Malysheva D.A., Sukhotskaya A.A., Bairov V.G., Kaganstov I.M., Kokhreizde N.A., Zazerskaya I.E., Ovsyannikov F.A.

Surgical aspects of the treatment of neonatal ovarian cysts in girls

Almazov National Medical Research Centre, Saint-Petersburg, 107341, Russia

Introduction. Neonatal ovarian cysts develop in case of hormonal imbalance in the mother-placenta-fetus system. Cystic transformation in the ovary may cause appendage torsion which leads to follicular necrosis and loss of ovarian reserve. Most often, torsion occurs in the utero, but in premature girls- due to the specific hormonal status - the risk of cyst growth and its torsion remains in the postnatal period. Currently, a unified approach to the surgical treatment of neonatal ovarian cysts is absent.

Material and methods. In the department of pediatric surgery for malformations in the Perinatal Center of the Almazov National Medical Research Center, 34 girls with ovarian cysts were examined during 2012-2020; 9 of them (27%) were premature. In the presented observation, we faced an ovarian cyst in the fetus of 30 week gestation.

Results. The cyst looked uncomplicated, but had the enormous size, so we discussed a possibility to perform an intrauterine puncture. However, due to severe hemolytic disease of the fetus and premature delivery, the intervention was not carried out. By the third week of life, torsion of the cystic-transformed ovary developed; necrosis and self-amputation of the right uterine appendage were revealed intraoperatively. By the age of three months, cystic transformation of the only ovary developed. Timely performed laparoscopic fenestration was organ-sparing. Further follow-up revealed preserved and normally growing single ovary what confirmed the right choice of surgical tactics.

Conclusion. Dynamic ultrasound examination of the pelvic organs is indicated to all premature girls, at least once every two weeks (in case of revealed ovarian cyst - weekly). We consider it reasonable to make the laparoscopic fenestration of uncomplicated cysts

that have size of 3 cm and more. Newborn girls with ovarian cysts should be under the joint control of pediatrician and pediatric gynecologist for developing an individual follow-up plan.

Key words: *cysts; ovary; newborns; premature newborn girls*

For citation: Malysheva D.A., Sukhotskaya A.A., Bairov V.G., Kagantsov I.M., Kokhreizde N.A., Zazerskaya I.E., Ovsyannikov F.A. Surgical aspects of the treatment of neonatal ovarian cysts in girls. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 278-283. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-278-283> (In Russian)

For correspondence: *Darya A Malysheva*, MD, pediatric surgeon of pediatric surgical department, Institute of Perinatology and Pediatrics in the Almazov National Medical Research Centre, Saint-Petersburg, 197341, Russia. E-mail: darmalysheva@gmail.com

Information about authors:

Malysheva D.A., https://orcid.org/0000-0002-0738-9640 .	SPIN-code: 3367-8610, AuthorID: 1103017.
Sukhotskaya A.A., https://orcid.org/0000-0002-8734-2227 .	SPIN-code: 6863-7436, AuthorID: 647729.
Bairov V.G., https://orcid.org/0000-0002-8446-830X .	SPIN-code: 6025-8991, AuthorID: 623392.
Kagantsov I.M., https://orcid.org/0000-0002-3957-1615 .	SPIN-code: 7936-8722, AuthorID: 333925.
Kokhreizde N.A., https://orcid.org/0000-0002-0265-9728 .	SPIN-code: 9382-2225, AuthorID: 648349.
Zazerskaya I.E., https://orcid.org/0000-0003-4431-3917 .	SPIN-code: 5683-6741, AuthorID: 323994.
Ovsyannikov F.A., https://orcid.org/0000-0002-3176-8958 .	SPIN-code: 2511-2772, AuthorID: 597895.

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: *Malysheva D.A.* – the concept and design of the study, the collection and processing of the material, statistical analysis, writing a text (40%); *Sukhotskaya A.A., Bairov V.G., Kagantsov I.M., Kokhreizde N.A., Zazerskaya I.E., Ovsyannikov F.A.* – the concept and design of the study, the collection and processing of the material, statistical analysis (by 10%). *All co-authors* – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: May 20, 2021
Accepted: June 05, 2021

Введение

Неонатальная овариальная киста (киста яичника у новорожденной) диагностируется при наличии в яичнике новорожденной девочки фолликула более 20 мм в диаметре, возникающего при избыточном накоплении жидкости в атрезирующемся фолликуле, в котором исчез ооцит [1, 2].

Частота выявления неонатальных кист яичников увеличивалась по мере совершенствования визуализирующей способности аппаратов для проведения ультразвукового исследования (УЗИ), и в настоящее время антенатально выявляется 1 случай кисты на 2500 живорожденных, по результатам аутопсий новорожденных девочек заболевание встречается в 34% случаев [3–8].

В эмбриогенезе, начиная с 16-й недели гестации, первичные ооциты окружаются клетками гранулёзной ткани, что приводит к старту фолликулогенеза, степень которого контролируется уровнями материнского эстрогена, хорионического гонадотропина (ХГЧ) плаценты и плода [4, 5, 8–10]. При патологическом ответе на гормональную стимуляцию возникает избыточный рост фолликулов [4, 8, 9].

Овариальные кисты у плодов и новорожденных, как правило, имеют бессимптомное течение и выявляются благодаря проведению УЗИ-скринингов беременным (с 25-й недели гестации плода) и плановым обследованиям новорожденных [8, 11, 12]. Однако, несмотря на клиническое благополучие, в связи с тем, что у новорожденных овариальные кисты представляют собой кистозную трансформацию яичника, они могут осложняться перекрутом придатков, чему способствуют анатомо-физиологические особенности их строения в раннем возрасте (изгибы маточных труб, эластичный и подвижный связочный аппарат яичников), что приводит к гибели фолликулов и безвозвратной потере овариального резерва [5, 13, 14]. Подавляющий процент осложнений возникает пре- и интранатально [9]. После рождения у доношенных девочек уровни материнского ХГЧ и собственных гонадотропинов снижаются, поэтому большинство неосложненных кист спонтанно разрешаются [5, 15]. По-иному происходит перестройка гормонального фона у недоношенных девочек (менее 32 нед гестации): из-за незрелости гонадостатических механизмов в сыворотке крови повышен уровень фолликулостимулирующего и

лютеинизирующего гормонов, что приводит к избыточной стимуляции фолликулогенеза уже в постнатальном периоде [8, 14–17].

До сих пор подходы к пре- и постнатальному ведению неонатальных овариальных кист разнятся: дискуссионными показателями к оперативному лечению как простых, так и осложненных кист [2, 4, 5, 7, 8, 12, 18–21]. Более того, отдельно предложенной стратегии наблюдения и лечения кист у недоношенных девочек в литературе нет. Так, одни авторы придерживаются длительной консервативно-наблюдательной тактики даже при кистах более 3–4 см в диаметре [7, 12, 16, 19, 21–23], другие придерживаются активной хирургической позиции при кистах более 4 см [11, 18, 20, 24], третьи предлагают проводить хирургическое вмешательство даже внутриутробно [2, 7, 12, 14, 25, 26]. Однако именно у недоношенных отмечают быстрое увеличение кист в размерах уже после рождения, в связи с чем мы считаем актуальным представить наш клинический случай. Всего в отделении детской хирургии пороков развития Перинатального центра НМИЦ им. В.А. Алмазова за период 2012–2020 гг. находились на обследовании и лечении 34 девочки первых трех месяцев жизни, из них 9 (27%) были недоношенными. У 4 недоношенных девочек кистозная трансформация яичников была двусторонней. В 16 (42%) наблюдениях кисты были простыми, в 22 (58%) – осложненными. Оперирована 31 (91%) девочка. В связи с необратимыми изменениями придатков вследствие перекрута выполнено их удаление у 21 (68%) ребенка. Фенестрация кист выполнена у 10 (32%) девочек, из них у 4 – двусторонняя, и в одном случае сразу после деторсии.

Клиническое наблюдение

Девочка от 7-й беременности на фоне течения гемолитической болезни плода (матери 44 года, предыдущие беременности: 1-, 3-, 4-я – искусственный аборт, 2-я – преждевременные роды на 36-й неделе (резус-конфликт, здоровый мальчик); 5-я – самопроизвольный аборт на 4/5-й неделе, 6-я – аборт по медицинским показаниям, 7-я – настоящая). На 30-й неделе гестации выявлено кистозное образование брюшной полости плода женского пола, размерами 50 × 42 мм, однородное, анэхогенное; на 31-й нед образование увеличилось до 56 × 38 мм.

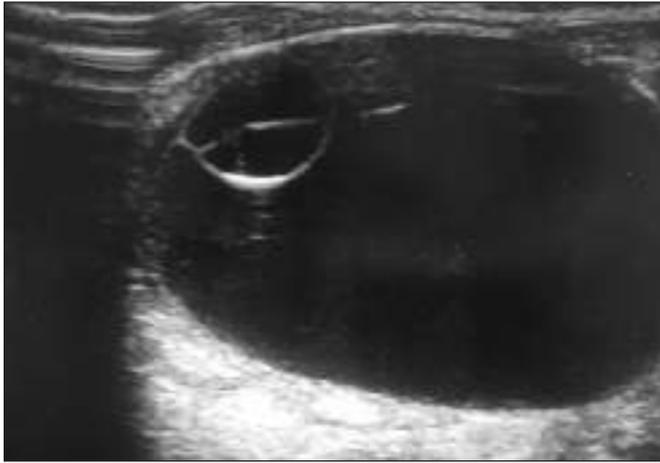


Рис. 1. УЗ-картина кистозно-трансформированного яичника больших размеров с анэхогенным содержимым.

Fig. 1. Ultrasound picture of the cystic-transformed ovary of large size with anechogenic contents.

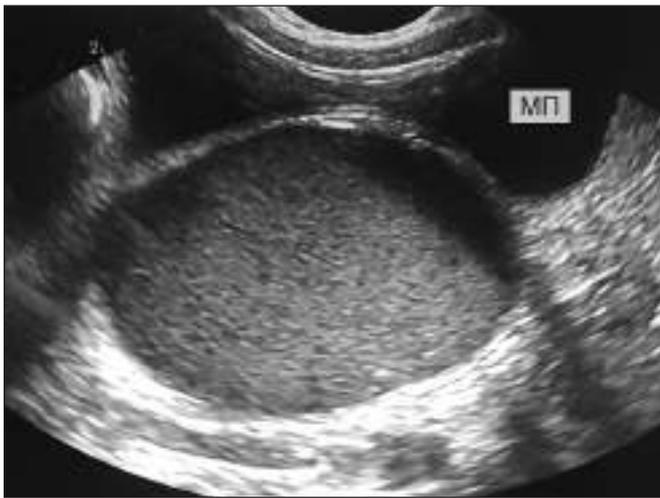


Рис. 2. УЗ-картина осложнённого перекрутом кистозно-трансформированного яичника неоднородной эхоструктуры, прилежащего к мочевому пузырю (МП).

Fig. 2. Ultrasound picture of the cystic-transformed ovary complicated by torsion of heterogeneous echostructure adjacent to the bladder.

Учитывая увеличение размеров кисты и риск заворота яичника с его некрозом, поднимался вопрос о проведении внутриутробной аспирации содержимого кисты, однако имея в виду тяжёлое состояние плода, по данным доплерометрии: скорость в средней мозговой артерии (СМА) плода превышала 1,5 МоМ (пороговое значение, превышение которого свидетельствует о развитии у плода тяжелой анемии – 1,29 МоМ). Принято решение о первоочередном выполнении внутриутробного внутрисосудистого переливания плоду отмытых эритроцитов донора. Под постоянной ультразвуковой навигацией иглой 22 G выполнен трансабдоминальный кордоцентез. Произведён забор пуповинной крови плода. Гемоглобин плода составил 76 г/л. Произведено переливание 56 мл донорских эритроцитов. Гемоглобин плода после переливания достиг 124 г/л. Скорость в СМА снизилась до 1,23 МоМ. Спустя 1 нед скорость в СМА вновь превысила 1,5 МоМ. Принято решение о повторной внутриутробной коррекции анемии плода. Во время пункции пуповины плода зафиксировано урежение ЧСС плода

до 100 уд. в 1 мин, без восстановления. В связи с острой гипоксией плода внутриутробное переливание остановлено и беременная родоразрешена путем операции кесарева сечения в экстренном порядке. Роды II, преждевременные, при рождении масса тела девочки 1850 г, длина 35 см, оценка по шкале Апгар 3/5 баллов. Состояние ребёнка тяжёлое за счёт перенесённой гипоксии, дыхательных и гемодинамических нарушений. В родильном зале ребёнку начата искусственная вентиляция легких (ИВЛ), переведена в реанимацию, где продолжена ИВЛ, инотропная поддержка в течение 2 сут, экстубирована через 27 ч, далее находилась на неинвазивной ИВЛ. С 4-х суток жизни девочка на самостоятельном дыхании, на 6-е сутки жизни переведена в отделение патологии новорождённых. Гемотранфузии в постнатальном периоде не проводились. По данным УЗИ, после рождения у ребёнка визуализировалась киста яичника (кистозно-трансформированный яичник) размерами 46 × 41 × 48 мм, содержимое которого сохранялось анэхогенным (рис. 1). Учитывая тяжёлое состояние новорождённой, отсутствие увеличения кисты в динамике, даже некоторый регресс, несмотря на размеры кисты, оперативное лечение было отложено до нормализации состояния. В динамике при проведении УЗИ через 3 нед киста осложнилась заворотом яичника: многокамерное образование неоднородной эхоструктуры, со взвесью, размерами 57 × 30 мм (рис. 2), в связи с чем на 23-и сутки жизни в срочном порядке ребёнку было выполнено оперативное лечение. Интраоперационно при лапароскопической ревизии был обнаружен правый кистозно-трансформированный яичник с маточной трубой, перекрученные на 360°, стенка кисты дряблая, серо-коричневая; размеры 5,5 × 3 см (рис. 3). Фактически имела место полная самоампутация придатков на уровне маточного угла (рис. 4). Матка, левая маточная труба, левый яичник не изменены (рис. 5). Произведено лапароскопическое удаление правых придатков матки на уровне маточного угла после электрокоагуляции аппаратом «LigaSure» (рис. 6). Заключение гистологического исследования: некротизированная стенка кисты яичника, фолликулы не определяются – серозная цистаденома с некрозом.

Выписана в удовлетворительном состоянии в возрасте 1 мес 12 сут жизни (постконцептуальный возраст (ПКВ) – 37 нед) с массой тела 2600 г.

При амбулаторном наблюдении : УЗИ в возрасте 2 мес 17 сут жизни (ПКВ – 47 нед) – левый яичник представлен кистой размерами 21 × 30 × 41 мм. В срочном порядке девочка госпитализирована в отделение детской хирургии, при проведении УЗИ – левый яичник представлен множественными фолликулами до 5 мм и одной крупной кистой 31 × 30 × 41 мм. Пациентка консультирована детским гинекологом. В связи с угрозой перекрута единственного кистозно-трансформированного яичника выставлены показания к срочному оперативному вмешательству. Выполнена операция: лапароскопическая фенестрация кисты левого яичника (рис. 7). По результатам гистологического исследования: стенка кисты яичника представляет собой фиброзную ткань без выстилки.

На 7-е сутки после оперативного вмешательства проведено УЗИ органов малого таза: левый яичник без нарушения кровоснабжения, размеры 21 × 12 мм, представлен множественными фолликулами до 6 мм. В удовлетворительном состоянии ребёнок выписан домой. В последующем девочка продолжила наблюдение у детского гинеколога, каждые 3 мес выполняются УЗИ малого таза. По результатам последнего УЗИ в 1 год 3 месяца: левый яичник нормальных размеров (18 × 10 мм), признаков гипертимстимуляции нет (фолликулы 3–4 мм).



Рис. 3. Перекрут и некроз кистозно-трансформированного правого яичника с маточной трубой.

Fig. 3. Torsion and necrosis of the cystic-transformed right ovary with the fallopian tube.

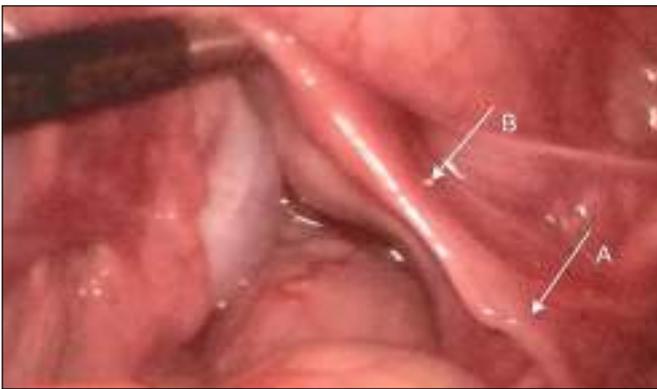


Рис. 4. Матка с неизменёнными левыми придатками и культя правой маточной трубы (стрелка А). Стрелкой В указан уровень резекции трубы на уровне маточного угла.

Fig. 4. The uterus with unaltered left appendages and stump of the right fallopian tube (arrow A). Arrow B shows the level of tube resection at the level of uterine angle



Рис. 5. Матка с неизменёнными левыми придатками.

Fig. 5. Uterus with unaltered left appendages.

Обсуждение

Разделение кист у плодов на простые и осложнённые по ультразвуковым признакам предложено A.R. Nussbaum [27]. Простые кисты – тонкостенные, монокулярные, содержимое их гомогенное, анэхогенное. Осложнённые кисты по УЗИ характеризуются толстой капсулой, гетерогенным содержимым, наличием септ, включений, которые возникают из-за перекрута и/или кровоизлия-

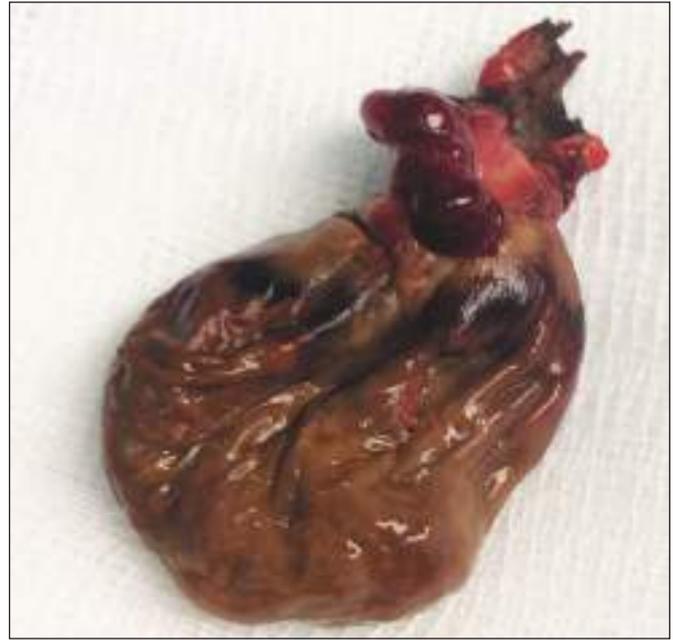


Рис. 6. Макропрепарат некротизированного кистозно-трансформированного правого яичника с частью маточной трубы.

Fig. 6. Macropreparation of the necrotized cystic-transformed right ovary with a part of the fallopian tube.



Рис. 7. Лапароскопическая фенестрация неосложнённого кистозно-трансформированного яичника.

Fig. 7. Laparoscopic fenestration of the uncomplicated cystic-transformed ovary.

ния, и последующим изменением характера содержимого и стенок кисты [7, 9, 23, 24, 27–29]. При диаметре простой кисты более 30–40 мм показано оперативное лечение с целью предотвращения перекрута яичника и придатков [11, 18, 20, 24]. В 1990 г. С. Girolandino и соавторы сообщили о выполнении первой внутритрубной пункции содержимого кисты яичника [30]. С тех пор необходимость данной манипуляции обсуждается. Однако пренатальная аспирация выполнима только при

определённом положении плода и расположении кисты сразу под передней брюшной стенкой. В результате пункции кисты и аспирации содержимого возможны такие осложнения как: кровотечение в просвет кисты и/или в брюшную полость плода, перфорация кишечника, преждевременное родоразрешение [2, 10, 23, 31]. С другой стороны, внутриутробная аспирация не является патогенетическим методом лечения: описаны рецидивы кист, возникающие уже в течение первой недели после пункции [23]. В то же время выявлено статистически достоверное уменьшение относительного количества детей, подвергшихся оперативному лечению после рождения, в сравнении с девочками без пренатального лечения (7% против 49%) [2, 26]. В постнатальном периоде простые кисты больших размеров фенестрируются лапароскопически, что приводит к хорошим отдалённым результатам [8, 15, 21, 32]. Кисты диаметром менее 30 мм наблюдаются консервативно, и как правило, к 3–6-му месяцу происходит их спонтанный регресс [16, 21, 22, 32, 33].

В нашем наблюдении мы столкнулись с кистой яичника больших размеров у плода 30 нед гестации, которая выглядела неосложнённой, но достигала огромных размеров и имела риск внутриутробного перекрута, в связи с чем обсуждался вопрос о проведении внутриутробной пункции кисты. Однако в связи с гемолитической болезнью плода, потребовавшей повторных внутриутробных гемотрансфузий, преждевременным родоразрешением, вмешательство не было осуществлено. После рождения, по данным УЗИ, киста оставалась неосложнённой, состояние новорождённой недоношенной девочки было тяжёлым, в связи с чем оперативное лечение было отложено. К третьей неделе жизни произошёл перекрут кистозно-трансформированного яичника. Следует отметить, что у доношенных девочек перекрут кисты возникает чаще всего внутриутробно [6, 20, 29, 34]. В нашем случае органуносящий объем срочной операции был обусловлен состоявшимся некрозом и самоампутацией правых придатков матки вследствие перекрута. Синдром эндогенной гиперстимуляции яичников, характерный для недоношенных девочек с разной степенью перинатального поражения ЦНС, привел впоследствии к кистозной трансформации единственного яичника с быстрым увеличением размеров кисты. Сохранить яичник позволила своевременно проведённая лапароскопическая фенестрация. Дальнейшее наблюдение за ребёнком показало сохранение и нормальный рост единственного яичника, что подтвердило обоснованность хирургической тактики.

Заключение

Всем девочкам, рождённым недоношенными, в первые три месяца жизни показано динамическое ультразвуковое исследование органов малого таза не реже одного раза в две недели (при возникновении кисты яичника – еженедельно).

Ввиду доказанного продолжения избыточной гормональной стимуляции фолликулогенеза, а значит и увеличения размеров кисты, сохранения риска перекрута в постнатальном периоде у недоношенных девочек, считаем обоснованным проведение лапароскопической фенестрации неосложнённых кист, достигших размера 3 см и более.

Ведение новорождённых девочек с кистами яичников должно проводиться совместно с детским гинекологом, что позволяет выработать индивидуальный план лечения и наблюдения.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 2, 6–10, 12–17, 20–34 см. в References)

1. Бачалдин С.Л., Рыжавская И.Б. Морфологическая характеристика кист в яичниках новорождённых и детей первого года жизни. *Дальневосточный медицинский журнал*. 2006; 2: 60–2.
3. Спиридонов А.А. Трансумбиликальный доступ при операциях по поводу кист яичников больших размеров у новорождённых. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии*. 2016; 6 (1): 100–3.
4. Ольхова Е. Б., Мукасеева М.В. Ультразвуковая диагностика осложнённой кисты яичника у новорождённой с энтероколитом. *Радиология – практика*. 2017; 63 (3): 39–53.
5. Тихоненко И.В., Чуканов А.Н. Пренатальная ультразвуковая диагностика образований малого таза. II. Кисты яичников у плода: что действительно важно? Обзор литературы. *Пренатальная диагностика*. 2019; 18 (4): 304–12.
11. Марухно Н.И., Шапкин В.В., Черныш А.Н., Голиченко Т.Н., Вилисова Л.В., Ларионова М.В. Кисты яичников у новорождённых. *Тихоокеанский медицинский журнал*. 2005; 3: 85–8.
18. Лейга А.В., Воловик К.Г., Чепурной М.Г., Ковалёв М.В., Хоронько Ю.В. Особенности хирургического лечения кист яичников у новорождённых. *Детская хирургия*. 2018; 22 (5): 250–3.
19. Майер Ю.И., Гусейнова А.Э., Майер П.О. Новообразования яичников у новорождённых. *Научный медицинский вестник Югры*. 2014: 1–2 (5–6): 118–21.

REFERENCES

1. Bachaldin S.L., Ryzhavskaia I.B. Morphologic characteristic of ovarian cysts in newborns and 1-year-old children. *Dal'nevostochniy medicinskij zhurnal*. 2006; 2: 60–2. (in Russian)
2. Tyraskis A., Bakalis S., David A.L., Eaton S., Coppi P. A systematic review and meta-analysis on fetal ovarian cysts: impact of size, appearance and prenatal aspiration. *J.Prenat Diagn*. 2017; 37 (10): 951–8.
3. Spiridonov A.A. Transumbilical approach in operations on the large sizes ovarian cysts in newborns. *Rossiyskiy vestnik detskoy hirurgii, anesteziologii i reanimatologii*. 2016; 6 (1): 100–3. (in Russian)
4. Ol'khova E.B., Mukaseeva T.V. Ultrasound diagnostic of the complicated ovarian cyst in newborn with enterocolitis (literature review and clinical case). *Radiologiy – praktika*. 2017; 63 (3): 39–53. (in Russian)
5. Tikhonenko I.V., Chukanov A.N. Prenatal ultrasound diagnostic of pelvic masses. II Neonatal ovarian cysts: what is really important? Literature review. *Prenatalnaya Diagnostika*. 2019; 18 (4): 304–12. (in Russian)
6. Papic J.C., Billmire D.F., Rescorla F.J., Finnell S.M., Leys C.M. Management of neonatal ovarian cysts and its effect on ovarian preservation. *J Pediatr Surg*. 2014; 49 (6): 990–94.
7. Cesca E., Midrio P., Boscolo-Berto R., Snijders D., Salvador L., D'Antona D., Zanon G.F., Gamba P. Conservative treatment for complex neonatal ovarian cysts: a long-term follow-up analysis. *J Pediatr Surg*. 2013; 48 (3): 510–5.
8. Akin M.A., Akin L., Özbek S., Tireli G., Kavuncuoglu S., Sander S., et. al. Fetal-neonatal ovarian cysts-their monitoring and management: retrospective evaluation of 20 cases and review of the literature. *J Clin Res Pediatr Endocrinol*. 2010; 2 (1): 28–33.
9. Gaudin J., Le Treguilly C., Parent P., Le Guern H., Chabaud J.J., Boog G., et. al. Neonatal ovarian cysts. *Pediatr Surg Int* 1988; 3: 158–64.
10. Crombleholme T.M., Craigo S.D., Garmel S., D'Alton M.E. Fetal ovarian cyst decompression to prevent torsion. *J Pediatr Surg*. 1997; 32 (10): 1447–9.
11. Marukhno N.I., Shapkin V.V., Chernysh A.N., Golichenko T.N., Vilisova L.V., Larionova M.V. Ovarian cysts in newborns. *Tihookeanskiy medicinskij zhurnal*. 2005; 3: 85–8. (in Russian)
12. Galinier P., Carfagna L., Juricic M., Lemasson F., Moscovici J., Guitard J., et. al. Fetal ovarian cysts management and ovarian prognosis: a report of 82 cases. *J Pediatr Surg*. 2008; 43 (11): 2004–9.
13. Bagolan P., Rivosecchi M., Giorlandino C., Bilancioni E., Nahom A., Zaccara A., Trucchi A., Ferro F. Prenatal diagnosis and clinical outcome of ovarian cysts. *J Pediatr Surg*. 1992; 27 (7): 879–81.
14. Bagolan P., Giorlandino C., Nahom A., Bilancioni E., Trucchi A., Gatti C., et. al. The management of fetal ovarian cysts. *J Pediatr Surg*. 2002; 37 (1): 25–30.
15. Pelizzo G. Neonatal Ovarian Cysts. In: *Lima M., Reinberg O. eds. Neonatal Surgery: Contemporary Strategies from Fetal Life to the First Year of Age*. Springer Nature Switzerland AG 2019: 491–8.

16. Shimada T., Miura K., Gotoh H., Nakayama D., Masuzaki H. Management of prenatal ovarian cysts. *Early Hum Dev.* 2008; 84 (6): 417-20.
17. Sedin G, Bergquist C, Lindgren PG. Ovarian hyperstimulation syndrome in preterm infants. *Pediatr Res.* 1985; 19 (6): 548-52.
18. Leyga A.V., Volovik K.G., Chepurnoy G.I., Chepurnoy M.G., Kovalev M.V., Khoron'ko Yu.V. Peculiarities of surgical treatment of ovarian cysts in newborns. *Detskaya Khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2018; 22 (5): 250-3. (in Russian)
19. Mayer Yu.I., Guseynova A.E., Mayer P.O. Ovarian neoplasms at newborns. *Nauchnyj medicinskiy vestnik Yugry.* 2014: 1-2 (5-6): 118-21. (in Russian).
20. Cho M.J., Kim D.Y., Kim S.C. Ovarian Cyst Aspiration in the Neonate: Minimally Invasive Surgery. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2015; 28 (5): 348-53.
21. Zampieri N., Borruto F., Zamboni C., Camoglio F.S. Foetal and neonatal ovarian cysts: a 5-year experience. *Arch Gynecol Obstet.* 2008 Apr; 277 (4):303-36.
22. Cimador M., Sireci F., Di Pace M.R., De Grazia E. One-trocar, video-assisted stripping technique for use in the treatment of large ovarian cysts in infants. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2010; 23 (3): 168-71.
23. Trotman G.E., Zamora M., Gomez-Lobo V. Non-surgical management of the auto-amputated adnexa in the neonate: a report on two cases. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2014; 27 (2): 107-10.
24. Kessler A., Nagar H., Graif M., Ben-Sira L., Miller E., Fisher D., et. al. Percutaneous drainage as the treatment of choice for neonatal ovarian cysts. *Pediatr Radiol.* 2006; 36 (9): 954-8.
25. Shozu M., Akasofu K., Iida K., Harada T. Treatment of an antenatally diagnosed fetal ovarian cyst by needle aspiration during the neonatal period. *Arch Gynecol Obstet.* 1991; 249 (2): 103-6.
26. Diguisto C., Winer N., Benoist G., Laurichesse-Delmas H., Potin J., Binet A., et. al. In-utero aspiration vs expectant management of anechoic fetal ovarian cysts: open randomized controlled trial. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2018; 52 (2): 159-64.
27. Nussbaum A.R., Sanders R.C., Hartman D.S., Dudgeon D.L., Parmley T.H. Neonatal ovarian cysts: sonographic-pathologic correlation. *Radiology.* 1988; 168 (3): 817-21.
28. Llorens Salvador R., Sangüesa Nebot C., Pacheco Usmayo A., Picó Aliaga S., Garcés Iñigo E. Neonatal ovarian cysts: ultrasound assessment and differential diagnosis. *Radiologia.* 2017; 59 (1): 31-9.
29. Garel L., Filiatrault D., Brandt M., Grignon A., Boisvert J., Perreault G., et. al. Antenatal diagnosis of ovarian cysts: natural history and therapeutic implications. *Pediatr Radiol.* 1991; 21 (3): 182-4.
30. Giorlandino C., Rivosecchi M., Bilancioni E., Bagolan P., Zaccara A., Taramanni A., et. al. Successful intrauterine therapy of a large fetal ovarian cyst. *Prenat Diagn.* 1990 Jul; 10 (7): 473-5.
31. Puligandla P.S., Laberge J.M. Lethal outcome after percutaneous aspiration of a presumed ovarian cyst in a neonate. *Semin Pediatr Surg.* 2009; 18 (2): 119-21.
32. Tyraskis A., Bakalis S., Scala C., Syngelaki A., Giuliani S., Davenport M., et. al. A retrospective multicenter study of the natural history of fetal ovarian cysts. *J Pediatr Surg.* 2018; 53 (10): 2019-22.
33. Jeanty C., Frayer E.A., Page R., Langenburg S. Neonatal ovarian torsion complicated by intestinal obstruction and perforation, and review of the literature. *J Pediatr Surg.* 2010; 45 (6): 5-9.
34. Chiamonte C., Piscopo A., Cataliotti F. Ovarian cysts in newborns. *Pediatr Surg Int.* 2001; 17 (2-3): 171-4.

Стальмахович В.Н.¹, Кайгородова И.Н.², Ли И.Б.², Дмитриенко А.П.², Страшинский А.С.²

Воспалительная миофибробластическая опухоль у детей

¹Иркутская государственная медицинская академия последипломного образования – филиал ФГБОУ ДПО «Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 664049, г. Иркутск, Россия;

²ГБУЗ «Иркутская государственная областная детская клиническая больница», 664022, г. Иркутск, Россия

Введение. Воспалительная миофибробластическая опухоль (ВМО) является редким объёмным новообразованием детского возраста, исходящим из мезодермальной ткани и, согласно классификации опухолей мягких тканей, относится к опухолям с промежуточным биологическим потенциалом.

Цель – представить редкое объёмное образование лёгких и средостения у детей.

Материал и методы. В публикации представлены три клинических наблюдения ВМО. У всех троих мальчиков в возрасте 6, 8 и 15 лет опухоль локализовалась в правом гемитораксе: нижняя доля лёгкого (два ребёнка), верхнее переднее средостение (один) без достоверной органной принадлежности.

Результаты. Специфических клинических симптомов заболевания не отмечалось. У двух детей объёмное образование было случайной находкой: у одного ребёнка при ультразвуковом исследовании живота выявлена округлая опухоль над печенью, у другого – при проведении рентгенографии грудной клетки во время профилактического осмотра. Только в одном наблюдении опухоль лёгкого вызвала дыхательную недостаточность при физической нагрузке за счет полного ателектаза нижней доли и эмфиземы средней доли, что было обусловлено ростом опухоли из паренхимы нижней доли в просвет нижнедолевого и промежуточного бронхов. Значимых отклонений в клинических и биохимических анализах крови не было. Онкомаркеры были отрицательными. Показанием к оперативному лечению было наличие объёмного образования, топография которого была подтверждена мультиспиральной компьютерной томографией с контрастированием сосудов и фибробронхоскопией. Объём операции – торакотомия, лобтуморэктомия (1 ребёнок); торакотомия, пульмонотомия, туморэктомия (1 ребёнок); торакоскопия, удаление опухоли средостения (1 ребёнок). Наибольшие технические трудности отмечались при удалении опухоли средостения при её мобилизации от верхней полой вены и в апертуре грудной клетки, где она была интимно спаяна с плечеголовной веной. Послеоперационный период – без осложнений. Исход лечения у всех детей – выздоровление.

Заключение. ВМО органов грудной клетки не является большой редкостью. На дооперационном периоде достоверно верифицировать характер опухолевого процесса не представляется возможным. Хирургическое лечение носит радикальный характер, в ряде случаев возможно использование эндовидеотехнологий.

Ключевые слова: воспалительная миофибробластическая опухоль; дети

Для цитирования: Стальмахович В.Н., Кайгородова И.Н., Ли И.Б., Дмитриенко А.П., Страшинский А.С. Воспалительная миофибробластическая опухоль у детей. *Детская хирургия.* 2021; 25(4): 284-289. DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-284-289>

Для корреспонденции: Стальмахович Виктор Николаевич, доктор медицинских наук, профессор, заведующий кафедрой детской хирургии ИГМАПО – филиал ФГБОУ ДПО РМАНПО МЗ РФ, 664049, г. Иркутск. E-mail: Stal.irk@mail.ru

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов: Стальмахович В.Н. – концепция и дизайн исследования, научное редактирование, утверждение окончательного варианта статьи; Кайгородова И.Н., Дмитриенко А.П. – сбор и обработка материала, статистический анализ; Ли И.Б. – иллюстрации; Страшинский А.С. – корректура большого, написание текста. Все соавторы – ответственность за целостность всех частей статьи.

Поступила в редакцию 23 марта 2021

Принята в печать 05 июня 2021

Stalmakhovich V.N.¹, Kaygorodova I.N.², Li I.B.², Dmitrienko A.P.², Strashinski A.S.²

Inflammatory myofibroblastic tumor in children

¹Irkutsk State Medical Academy of Postgraduate Education, Irkutsk, 664049, Russia;

²Irkutsk State Regional Children's Clinical Hospital, Irkutsk, 664022, Russia

Introduction. Inflammatory myofibroblastic tumor (IMT) is a rare volumetric neoplasm in the childhood which originates from the mesodermal tissue, and by the classification of soft tissue tumors refers to the tumors with intermediate biological potential.

Purpose. To present a case of rare volumetric formation in the lungs and mediastinum in children.

Material and methods. The publication presents three clinical observations of children with IMT. In all three boys (aged 6, 8 and 15), tumors were localized in the right hemithorax: lower lobe of the lung (two children), upper anterior mediastinum (one) without a reliable organ accessory.

Results. There were no specific clinical symptoms of the disease. In two children, the volumetric formation was found accidentally: in one child, a rounded tumor above the liver was found during an ultrasound examination of the abdomen; in the other one, during chest X-ray prophylactic examination. Only in one case, the lung tumor caused respiratory failure during exercise due to the complete atelectasis of the lower lobe and emphysema of the middle lobe which was caused by the growth of the tumor from the parenchyma of the lower lobe into the lumen of the lower lobe and intermediate bronchi. There were no significant shifts in clinical and biochemical blood tests. Cancer markers were negative. Surgery was indicated because of the volume formation topography which was confirmed by the multispiral computed tomography with vascular contrast and fibrobronchoscopy. Surgical volume – thoracotomy, lobtumorctomy (1 child); thoracotomy, pulmonotomy, tumorectomy (1 child); thoracoscopy, removal of the mediastinal tumor (1 child). The most technically difficult was mobilization and removal of the mediastinal tumor when it was separated from the superior vena cava and in the chest aperture where it was intimately fused with the brachiocephalic vein. The postoperative period was without complications. All children recovered.

Conclusion. *IMT of the thoracic organs is not a rare case. It is not possible to reliably verify the nature of the tumor process in the preoperative period. Surgical treatment is radical and, in some cases, endovideotechnologies may be applied.*

Key words: *inflammatory myofibroblastic tumor; children*

For citation: Stalmakhovich V.N., Kaygorodova I.N., Li I.B., Dmitrienko A.P., Strashinski A.S. Inflammatory myofibroblastic tumor in children. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2021; 25(4): 284-289.
DOI: <https://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2021-25-4-284-289> (In Russian)

For correspondence: *Viktor N. Stalmakhovich*, MD, Dr.Sc.(med), professor, head of department of pediatric surgery in the Irkutsk State Academy of Postgraduate Education, Irkutsk, Russia. E-mail: Stal.irk@mail.ru

Information about authors:

Stalmakhovich V.N., <https://orcid.org/0000-0002-4885-123X>; eLirary SPIN: 9042-5092

Kaygorodova I.N., <https://orcid.org/0000-0002-2332-9285>; Li I.B., <https://orcid.org/0000-0003-1979-4616>

Strashinski A.S., <https://orcid.org/0000-0002-1911-4468>; Dmitrienko A.P., <https://orcid.org/0000-0002-0003-8792>; eLirary SPIN: 3415-9266

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

Funding. The study had no sponsorship.

Author contribution: *Stalmakhovich V.N.* – the concept and design of the study, scientific editing, approval of the final version of the article; *Kaygorodova I.N., Dmitrienko A.P.* – the collection and processing of the material, statistical analysis; *Li I.B.* – illustrations; *Strashinski A.S.* – cure of patients, writing a text. *All co-authors* – responsibility for the integrity of all parts of the article.

Received: March 23, 2021

Accepted: June 05, 2021

Введение

Впервые термин воспалительная миофибробластическая опухоль (ВМО) был введен в 1995 г. С.М. Coffin [1]. Заболевание встречается в любом возрасте, начиная с периода новорожденности [2–4] и может локализоваться в любом органе [5–9, 10], хотя ряд авторов отмечают преимущественную локализацию ВМО в лёгочной ткани [11–13]. Использование современных лучевых методов диагностики, в частности МСКТ, является приоритетным для выявления объёмного образования. До последнего времени основным методом лечения является радикальное удаление опухоли, приводящее в большинстве случаев к полному выздоровлению [14–16]. Окончательная верификация диагноза проводится с использованием гистологических, иммуноферментных и молекулярных методов исследования.

Цель – представить наши наблюдения достаточно редкого объёмного образования органов грудной клетки у детей.

Материал и методы

За последние 5 лет в Областной детской клинической больнице г. Иркутска на лечении находились трое детей с ВМО. У всех троих мальчиков в возрасте 6, 8 и 15 лет опухоль локализовалась в правом гемитораксе: нижняя доля лёгкого (2 детей) и у 1 ребёнка в верхнем переднем средостении без достоверной органной принадлежности.

Клиническое наблюдение 1

Ребёнок 3., 8 лет. Рос и развивался соответственно возрасту. В поликлинике по месту жительства выполнено УЗИ живота по поводу многократной рвоты, связанной с погрешностью питания. При этом выявлено округлое патологическое образование над печенью, паравертебрально, до 5 см в диаметре.

В процессе стационарного обследования в биохимических показателях крови со стороны онкомаркеров отклонений от нормы не отмечено. При МСКТ груди выявлено паравертебрально справа дополнительное образование (скелетотопически распространяется от Th8 до каудальной пластинки позвонка Th11). Образование округлой формы, с чёткими и достаточно ровными контурами во все фазы сканирования. Спереди оно прилежит к нижней полой вене, поддавливая и оттесняя её кпереди. Сзади – к телам позвонков, слева – к аорте и нижней трети пищевода без чёткого отграничения от последнего, снизу – к брюшному куполу диафрагмы. Признаков прорастания в брюшную полость не выявлено (рис. 1).

При нативном исследовании опухоль имеет однородную изоденсивную плотность (до 32–40 ед.Х). После внутривенного усиления она слабо коптит контраст до 51–62 ед.Х, в отсроченную фазу – до 84–90 ед.Х. В толще паренхимы образования визуализируются множественные мелкие сосуды и тонкая капсула толщиной до 0,1–0,2 см (138 ед.Х), отграничивающая образование от прилежащих органов.



Рис. 1. Мультиспиральная компьютерная томография с позиционированием объёмного образования в различных проекциях: *a* – поперечный срез; *б* – боковой срез; *в* – фронтальный срез.

Fig. 1. Multispiral computed tomography with positioning of the volumetric lesion in various projections: *a* – transverse section; *b* – lateral section; *c* – frontal section.

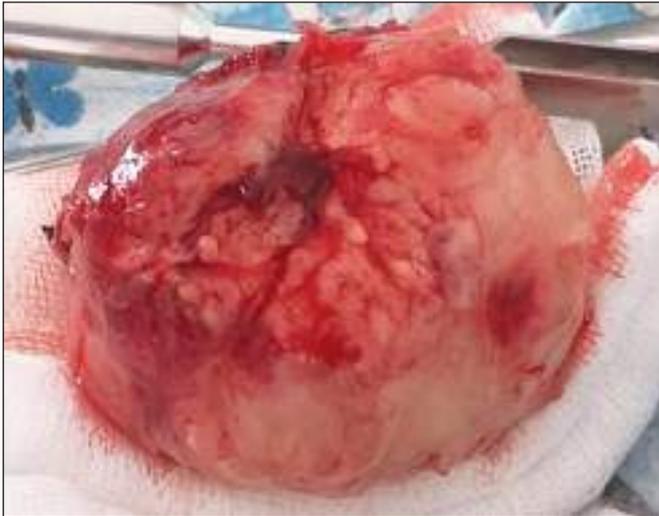


Рис. 2. Макропрепарат удалённой опухоли.
Fig. 2. Macropreparation of the removed tumor.

УЗС органов брюшной полости: образование округлой формы с чёткими контурами, прилежит к печени и нижней полой вене, деформирует её и оттесняет кпереди, размерами $\approx 5,0 \times 5,1 \times 5,2$ см, сниженной эхогенности, однородной структуры, кровотока по ЦДК достоверно не визуализируется. Заключение: объёмное образование заднего средостения.

Операция: правосторонняя торакоскопия, задняя торакотомия, удаление опухоли нижней доли правого лёгкого. При торакокопии установлено, что плотное объёмное образование располагается в толще паренхимы нижней доли. С использованием электрохирургического блока LigaSure проведена пульмонотомия, доступ к белесой округлой опухоли в капсуле, без признаков инфильтративного роста. Технически полностью выделить опухоль не удалось. Конверсия на заднюю торакотомию, при которой без особых трудностей опухоль выделена и удалена. Внешний вид удаленной опухоли представлен на рис. 2.

Послеоперационный период протекал без осложнений, заживление раны первичным натяжением.

Гистологическое заключение № 104972–104979: в образовании пролиферация вытянутых фибробласто-

подобных клеток, кое-где образующих пучки, диффузная инфильтрация и периваскулярно скопления лимфоидно- и плазмноклеточных инфильтратов. Фрагмент респираторной паренхимы с альвеолярным фиброзом. Заключение: воспалительная миофибробластическая опухоль лёгкого.

Клиническое наблюдение 2

Ребёнок П., 6 лет. История болезни: появление одышки после физической нагрузки мама заметила с лета 2020 г. Наблюдавшие ребёнка педиатр, кардиолог патологии со стороны органов грудной клетки не выявляли. По рекомендации фтизиатра проведена рентгенография груди и проба Манту (положительная), при этом выявлено образование в проекции кардио-диафрагмального синуса справа.

В стационаре выполнена МСКТ органов грудной клетки с внутривенным контрастированием. В задне-медиальных отделах правого гемиторакса, прилегая к позвоночному столбу, распространяясь в медиальные отделы нижней доли и до диафрагмы, визуализируется крупноузловое мягкотканное солидное образование, плотностью в нативную фазу до 47 ед.Х, с наличием мелких очагов обызвествления. После внутривенного усиления образование приобретает более выраженные контуры, копит контраст по периферии до 95 ед.Х, в центральных отделах до 70 ед.Х. Оно овальной формы, с выраженными ровными контурами, размерами до $5,5 \times 3,4 \times 4,7$ см. (рис. 3), тотально обтурирует нижне-долевой бронх, распространяется в краниальном направлении, субтотально обтурирует просвет промежуточного бронха и устье среднедолевого бронха. Нижняя доля резко уменьшена в объёме, с выраженным субтотальным снижением воздушности. Средняя доля увеличена в объёме, вздута. Субплеврально в 3- и 4-м сегментах визуализируются тяжистые участки фиброзных изменений с чёткими неровными контурами. В остальных отделах паренхима правого лёгкого обычной воздушности, полей патологической денситометрии не содержит. Заключение: узловое образование центральных отделов правого лёгкого с полной обтурацией нижнедолевого бронха, с прорастанием и субтотальной обтурацией промежуточного и среднедолевого бронха. Ателектаз нижней доли правого лёгкого. Эмфизематозное вздутие средней доли правого лёгкого. Сепарация S1 сегмента правого лёгкого. Минимальный гидроторакс справа. Увеличение бронхопальмональных лимфоузлов справа.

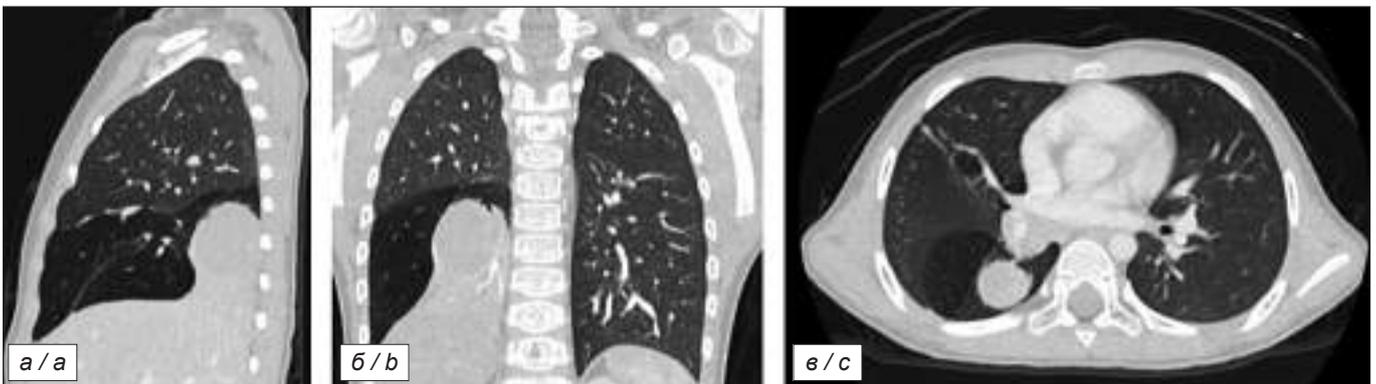


Рис. 3. Мультиспиральная компьютерная томография с позиционированием объёмного образования в различных проекциях: *a* – боковой срез; *b* – фронтальный срез; *c* – поперечный срез.

Fig. 3. Multispiral computed tomography with positioning of the volumetric lesion in various projections: *a* – lateral section; *b* – frontal section; *c* – cross section.



Рис. 4. Эндоскопическая картина опухоли в просвете промежуточного бронха.

Fig. 4. Endoscopic picture of the tumor in the lumen of the intermediate bronchus.



Рис. 6. Макропрепарат удалённой доли легкого с опухолью в разрезе.

Fig. 6. Macropreparation of the removed lobe of the lung with the tumor in the incision.

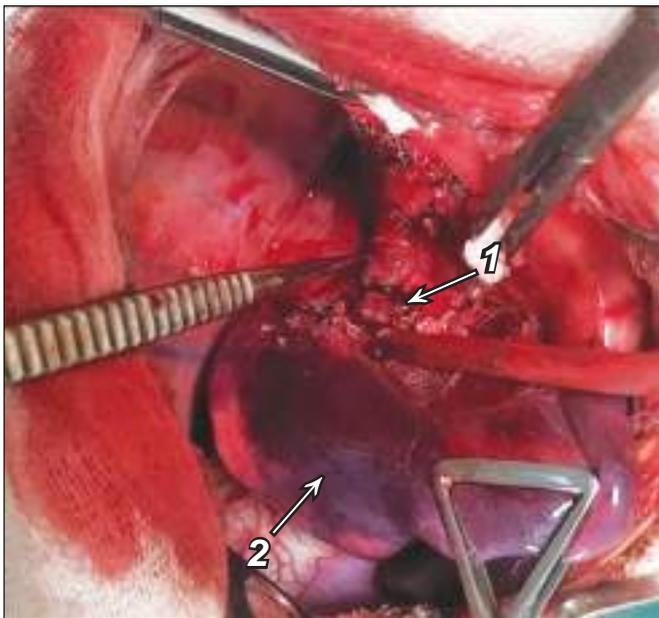


Рис. 5. Интраоперационный вид: 1 – опухоль в просвете промежуточного бронха; 2 – опухоль нижней доли правого лёгкого.

Fig. 5. Intraoperative view: 1 – a tumore in lumen in medium bronchus; 2 – a tumore de inferioribus lobe ius pulmonis.

Диагностическая трахеобронхоскопия: просвет промежуточного бронха обтурирован опухолевидным округлым образованием до 1,0 см. в диаметре (рис. 4). Взята щёточная биопсия. Атипии со стороны реснитчатого эпителия при гистологическом исследовании слизистой не выявлено.

Операция – торакотомия справа. Выявлено, что нижняя доля синюшно-фиолетового цвета, не вентилируется, плотная при пальпации и практически полностью состоит из округлой плотной опухоли. Средняя доля правого легкого эмфизематозно вздута. Проведено

раздельное лигирование элементов корня нижней доли, вскрыт просвет нижнедолевого бронха. Отмечено, что просвет нижнедолевого и промежуточного бронхов полностью обтурирован мягкоэластичной опухолью, распространяющейся из паренхимы нижней доли (рис. 5).

Нижняя доля удалена с внутрибронхиальным фрагментом опухоли, при этом восстановилась вентиляция средней доли. Герметизация культи нижнедолевого бронха ручным швом. На рис. 6 представлена нижняя доля с опухолью на разрезе.

Гистологическое заключение № 15246–15252: опухолевый узел представлен компактно расположенными веретенообразными клетками с различным количеством плазматических клеток, лимфоцитов, гистиоцитов и миофибробластов, наличием тучных клеток, эозинофилов, примесью нейтрофилов, мелкоочагового кальциноза. Перифокально в просвете альвеол гомогенный эозинофильный экссудат, кровь, участки эмфиземы. Заключение: воспалительная миофибробластическая опухоль правого лёгкого. Удалена в пределах здоровых тканей.

Послеоперационный период – без осложнений. Ребёнок выписан с выздоровлением.

Клиническое наблюдение 3

Ребёнок Н., 15 лет. При прохождении профилактического осмотра была выполнена рентгенография органов грудной клетки, при которой выявлено опухолевидное образование средостения. Клинически, и по данным лабораторных исследований крови, отклонений от нормы не было.

На МСКТ органов грудной клетки, средостения: справа, в области верхнего этажа средостения, между паренхимой верхней доли лёгкого, переднебоковыми отделами позвоночного столба (скелетопически от Th2 до Th5), боковой стенкой трахеи (от уровня бифуркации), верхней полой веной и плечеголовным стволом, поднимаясь кверху, «раздвигая» и минимально поддавливая правые общую сонную артерию и плечеголовную вену, визуализируется патологическое образование. Опухоль имеет округлую форму, ровные четкие контуры,

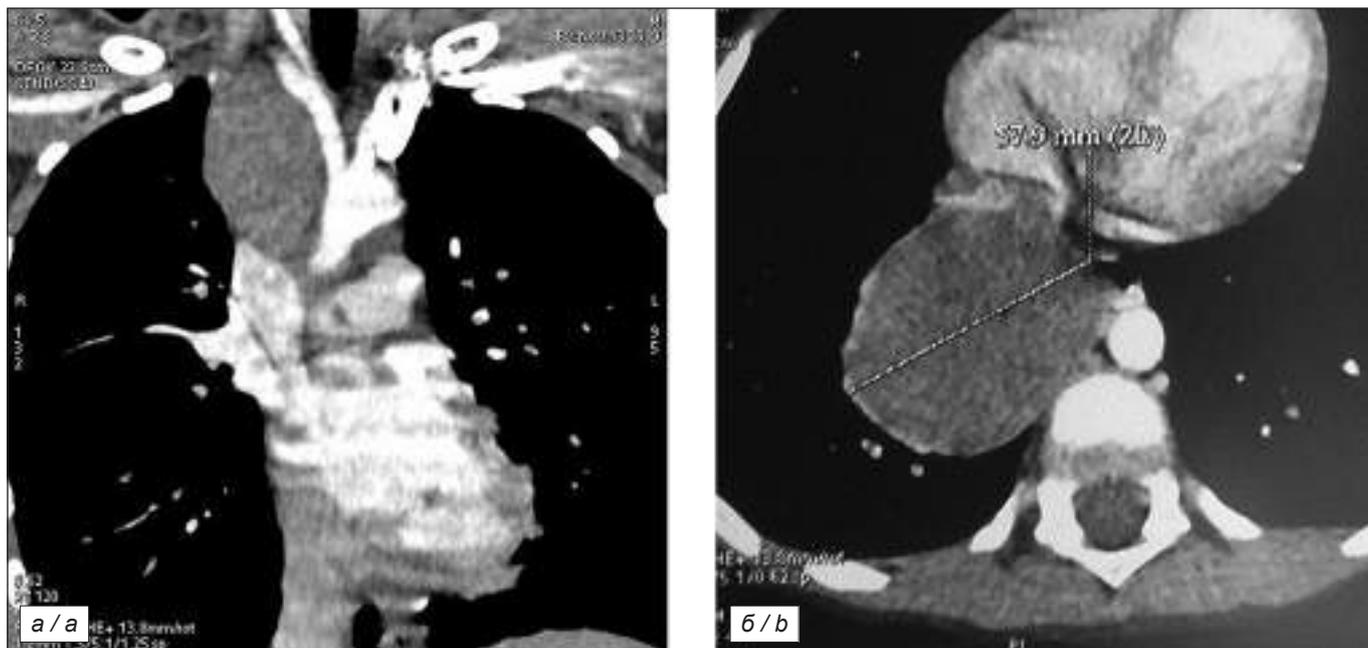


Рис. 7. Мультиспиральная компьютерная томография с позиционированием объёмного образования в различных проекциях: *a* – фронтальный срез; *б* – поперечный срез.

Fig. 7. Multispiral computed tomography with positioning of the volumetric lesion in various projections: *a* – frontal; *b* – cross.



Рис. 8. Эндоскопическая картина. Внешний вид опухоли до её удаления.

Fig. 8. Endoscopic picture of the tumor before its removal.



Рис. 9. Вид опухоли на этапе её эндоскопического удаления.

Fig. 9. Tumor view at the stage of its endoscopic removal.

плотностью во все фазы сканирования 48–63 ед.Х, размером 4,8 × 5,2 × 7,5 см. (рис. 7).

При фибробронхоскопии патологии не выявлено.

Операция: торакоскопия справа, удаление опухоли верхнего средостения. Внешний вид опухоли при торакоскопии представлен на рис. 8 и 9. Во время операции определённые трудности представляла мобилизация опухоли от верхней полой вены и в апертуре грудной клетки от плечеголовной вены.

Гистологическое заключение: миофибробластическая опухоль.

Послеоперационный период протекал без осложнений, ребёнок выписан с выздоровлением.

Заключение

Воспалительная миофибробластическая опухоль органов грудной клетки является достаточно редким объёмным образованием. На дооперационном периоде достоверно верифицировать характер опухолевого процесса не представляется возможным. Хирургическое лечение носит радикальный характер и в ряде случаев возможно с использованием эндовидеотехнологий.

ЛИТЕРАТУРА

(пп. 1, 3–5, 8–11, 13, 14 см. в REFERENCES)

2. Давыдов М.И., Мачаладзе З.О., Полоцкий Б.Е. и соавт. Мезенхимальные опухоли средостения (обзор литературы). *Сибирский онкологический журнал*. 2008; (1): 64–74.
6. Дубова Е.А., Павлов К.А., Франк Г.А., Щеголев А.И. Воспалительная миофибробластическая опухоль печени. *Архив патологии*. 2009; (3): 25–8.
7. Близиных О.П., Козлов Н.А. Воспалительная фибросаркома: клиничко-морфологический анализ шести случаев. *Вопросы онкологии*. 2011; (4): 474–80.
12. Попов С.Д., Ильина Н.А. Воспалительная миофибробластическая опухоль легкого: вопросы дифференциальной диагностики. *Вестник рентгенологии*. 2013; (6): 38–43.
15. Шестаков А.Л., Чарчян Э.Р., Рыков О.В., Базаров Д.В., Цховребов А.Т. Хирургическое лечение рецидивной воспалительной миофибробластической опухоли заднего средостения (клиническое наблюдение). *Журнал имени академика Б.В. Петровского*. 2014; (4): 66–71.
16. Батаев С.М., Федоров А.К., Афаунов М.В., Молотов Р.С., Зурбаев Н.Т., Карпович С.В., Смирнова С.Е. Торакоскопическая резекция воспалительной миофибробластической опухоли. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии. Приложение*. 2017: 33.
- late metastasis to the lung: case report and review of the literature. *Pediatric and Developmental Pathology*. 2005; (8): 224–9. DOI: 10.1007/s10024-004-8088-5.
6. Dubova E.A., Pavlov K.A., Frank G.A., Shchegolev A.I. Inflammatory myofibroblastic liver tumor. *Arkhiv patologii*. 2009; (3): 25–8. (In Russian)
7. Bliznyukov O.P., Kozlov N.A. Inflammatory fibrosarcoma: clinical and morphological analysis of six cases. *Voprosy onkologii*. 2011; (4): 474–80. (In Russian)
8. Butrynski J.E., D'Adamo D.R., Hornick J.L., et al. Crizotinib in ALK-rearranged inflammatory myofibroblastic tumor. *The New England Journal of Medicine*. 2010; (363): 1727–33.
9. Gaissert H.A., Grillo H.C., Shadmehr M.B., et al. Uncommon primary tracheal tumors. *The Annals of Thoracic Surgery*. 2006; (82): 268–72.
10. Pecoraro Y., Diso D., Anile M., et al. Primary inflammatory myofibroblastic tumor of the trachea. *Respirology Case Reports*. 2014; (2): 147–9.
11. Schram A.M., Chang M.T., Jonsson P., Drilon A. Fusions in solid tumours: diagnostic strategies, targeted therapy, and acquired resistance. *Nature Reviews Clinical Oncology*. 2017; (12): 735–48. DOI: 10.1038/nrclinonc.2017.127.
12. Попов С.Д., Ильина Н.А. Воспалительная миофибробластическая опухоль легкого: вопросы дифференциальной диагностики. *Вестник рентгенологии*. 2013; (6): 38–43. (In Russian)
13. Fabre D., Fadel E., Singhal S., et al. Complete resection of pulmonary inflammatory pseudotumors has excellent long term prognosis. *Journal of Thoracic and Cardiovascular Surgery*. 2009; (137): 435–40.
14. Chittane H., Aurea P., Bazzocchi R. I tumori mesenchimali del mediastino. *Acta Chirurgiae Plasticae*. 1991; 47(6): 1124–38.
15. Shestakov A.L., Charchyan E.R., Rykov O.V., Bazarov D.V., Tskhovrebov A.T. Surgical treatment of recurrent inflammatory myofibroblastic tumor of the posterior mediastinum (clinical case). *Zhurnal imeni akademika B.V. Petrovskogo*. 2014; (4): 66–71. (In Russian)
16. Bataev S.M., Fedorov A.K., Afaunov M.V., Molotov R.S., Zurbayev N.T., Karpovich S.V., Smirnova S.E. Thoracoscopic resection of an inflammatory myofibroblastic tumor. *Rossiyskiy vestnik detskoy khirurgii, anesteziologii i reanimatologii. Prilozheniye*. 2017: 33. (In Russian)

REFERENCES

1. Coffin C.M., Alaggio R. Fibroblastic and myofibroblastic tumors in children and adolescent. *Pediatric and Developmental Pathology*. 2012; (15):127–80.
2. Davydov M.I., Machaladze Z.O., Polotskiy B.E. and other. Mesenchymal tumors of the mediastinum (literature review). *Sibirskij onkologicheskij zhurnal*. 2008; (1):64–74. (In Russian)
3. Cerfolio R.J., Allen M.S., Nascimento A.G., et al. Inflammatory pseudotumor of the lung. *The Annals of Thoracic Surgery*. 1999; (67): 933–6.
4. De Palma A., Loizzi D., Sollitto F. Surgical treatment of a rare case of tracheal inflammatory pseudotumor in pediatric age. *Interactive Cardiovascular and Thoracic Surgery*. 2009; 9: 1035–7.
5. Morotti R.A., Legman M.D., Kerkar N., Pawel B.R., Sanger W.G., Coffin C.M. Pediatric inflammatory myofibroblastic tumor with

