

СЛУЧАЙ УСПЕШНОГО ЭНДОСКОПИЧЕСКОГО УДАЛЕНИЯ РЕЦИДИВНОЙ БРОНХОГЕННОЙ КИСТЫ ПИЩЕВОДА

У РЕБЕНКА 12 ЛЕТ

**A CASE OF SUCCESSFUL TREATED BY THE ENDOSCOPIC OPERATION OF A RECURRENT
BRONCHOGENIC ESOPHAGEAL CYST IN A 12-YEAR-OLD CHILD.**

А. А. Смирнов, А. Л. Копяков, М. М. Саадулаева, Е. С. Блинова, С. Ф. Багненко

Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Первый Санкт-Петербургский государственный медицинский университет имени академика И. П. Павлова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, Санкт-Петербург, Россия

**Alexander A. Smirnov, Alexander L. Kopyakov, Marina M. Saadulaeva, Evgeniya S. Blinova,
Sergei F. Bagnenko**

Pavlov University, St. Petersburg, Russia

Пациентка, с 4 лет получала лечение по поводу ви-
сочной эпилепсии с вегето-висцеральными и ауто-
моторными приступами. При обследовании было
выявлено кистозное образование средостения,
предположительно исходящее из пищевода подоз-
рительное на ГИСО, в связи с чем было выполнено
торакоскопическое иссечение кисты н/з пищевода;
морфологический диагноз — бронхогенная киста.
Через 5 лет отметила появление диспепсии, обсле-
дована повторно, были выявлены признаки грыжи
пищеводного отверстия диафрагмы, а также кистоз-
ная полость в проекции предыдущей операции, что
было расценено как рецидив. Однако, было приня-
то решение только о выполнении фундопликация
по Ниссену. Через месяц после операции вновь по-
явились диспептические жалобы. Через 1 год была
выполнена радикальная подслизистая эндоскопи-
ческая тоннельная резекция бронхогенной кисты.
Послеоперационный период протекал гладко, в на-
стоящий момент жалоб нет. На контрольных рент-
генограммах, выполненных через 6 месяцев, от-
мечается дивертикулоподобное расширение в зоне
операции.

Ключевые слова: бронхогенная киста, пероральная
эндоскопическая подслизистая туннельная резек-
ция, врожденная киста пищевода, заболевание пи-
щевода у детей.

Бронхогенные кисты — это полостные образования, строение которых схоже с тканями бронхиального дерева[1]. Являясь следствием дисэмбриогенеза, эти новообразования относятся к порокам развития, поэтому чаще встречаются в педиатрической практике[2, 3]. По данным литературы бронхогенные кисты являются наиболее распространенными среди

A 4-year-old patient was treated for temporal lobe epilepsy with vegeto-visceral and auto-motor attacks. She has tests. A cystic formation of the mediastinum from the esophagus was found, suspicious of GISO. Surgeons performed a thoracoscopic excision of the esophageal cyst; the morphological diagnosis was a bronchogenic cyst. After 5 years, she developed dyspepsia, and a second examination revealed a hernia of the esophageal orifice of the diaphragm and a cystic cavity at the site of the previous operation, which was regarded as a relapse. Surgeons performed only the Nissen fundoplication. A month after the operation, dyspeptic complaints reappeared. After 1 year, radical submucosal endoscopic tunnel resection of the bronchogenic cyst was performed. At the moment, she has no complaints. On control tests 6 months later a diverticulum was found at the site of surgery.

Keywords: bronchogenic cyst, peroral endoscopic submucosal tunnel resection, congenital esophageal cyst, esophageal disease in children.

всех медиастинальных первичных кист, составляя до 35%, а их доля среди всех первичных новообразований средостения доходит до 6,3% [4]. Бронхогенные кисты в 70% случаев располагаются в средостении[5], а интрапульмональная локализация встречается в 15–20% случаев; остальные локализации встречаются крайне редко[6]. Одной из самых

редких является паразофагеальная локализация, еще реже кисты обнаруживаются интрамурально в стенке пищевода [7, 8]. В англоязычной литературе в обзорных статьях в период с 1981 по 2016 г было описано всего 36 случаев лечения бронхогенных кист этой локализации[9, 10, 3]. Как правило, в просвете кисты содержится вязкий секрет, состоящий из воды, белкового субстрата, компонентов крови и солей кальция, что обуславливает визуальную сходность бронхогенных кист с солидными образованиями при ультразвуковой и рентгенологической диагностике[11]. Истинную частоту такого расположения бронхогенных кист установить затруднительно, так как в основном они протекают бессимптомно и выявляются случайно или при развитии осложнений[3, 9]. Симптомы появляются при значительном увеличении размеров или при появлении осложнений, к которым относят инфицирование, кровоизлияние в полость кисты, образование fistул[12, 6]. Из частых симптомов по данным литературы отмечают боли в грудной клетке, одышку, кашель,

стридор, рецидивирующую пневмонию и дыхательные расстройства из-за компрессии трахеи или бронхов; реже встречается дисфагия, пневмоторакс и компрессия верхней полой вены[4]. Малигнизация этих образований описывается редко. Так в метаанализе Kirmani малигнизация описывается в 5 (0,7%) из 683 исследованных случаев и в основном касаются внутрилегочной локализации[13]. Тактика ведения пациента может включать в себя периодический контроль[14]. Однако, по мнению многих авторов, при обнаружении бронхогенной кисты пациенту следует рекомендовать хирургическое лечение, так как существует высокая вероятность осложненного течения[15, 6]. Торакоскопическая хирургия является малоинвазивным методом лечения с частотой осложнений 10–30% (ранние послеоперационные осложнения, а также послеоперационная хроническая боль в грудной стенке, формирование дивертикулов стенки пищевода в зоне миотомии) [3]. Из 36 пациентов внутрипросветные эндоскопические резекционные методы были применены только у троих пациентов. Sashiyama H et al. в 2002 году[16] сообщают о полном удалении интрамуральной бронхогенной кисты методом фрагментарной петлевой резекции. Westerterp M et al.[17] опубликовали случай колпачковой резекции внутрипищеводной части бронхогенной кисты, причиной чему явилось ее инфицирование после аспирационной биопсии; при осмотре через 1 год отмечалось наличие небольшой полости с широким сообщением с просветом пищевода. Lee SH et al. в 2006 году описал двухэтапное удаление кисты кардиального отдела желудка, когда первым этапом была выполнена резекция стенки кисты для гистологической верификации, а после получения гистологического материала была выполнена фрагментарная петлевая резекция оставшейся части образования [18]. В 2012 году был предложен новый метод для удаления подслизистых образований пищевода — подслизистая туннельная эндоскопическая резекция (ПТЭР) [19]. Tang Xiaowei et al. в 2014 году представил случай, когда доступ к кисте был осуществлен через подслизистый тоннель с последующим вскрытием кисты, аспирацией содержащего и аргоноплазменной коагуляцией внутренней выстилки; отдаленные результаты не отслежены [20].

КЛЮЧЕВЫЕ ТЕЗИСЫ

Интрамуральные бронхогенные кисты пищевода являются крайне редким врожденным заболеванием, протекая как правило бессимптомно. Традиционные способы их удаления являются достаточно травматичными, сопровождаясь высоким процентом



Рис. 1. Эндоскопическое фото.
Полушаровидное выбухание слизистой
в просвет пищевода

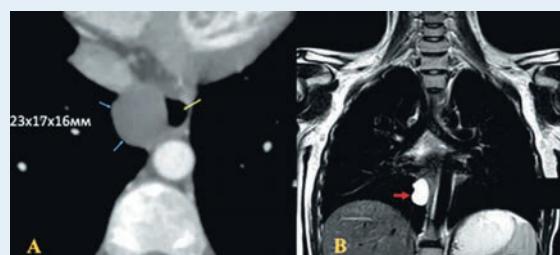


Рис. 2. А – МСКТ грудной клетки: желтая стрелка –
просвет пищевода, синие стрелки – киста;
В – МРТ грудной клетки: красная стрелка – киста

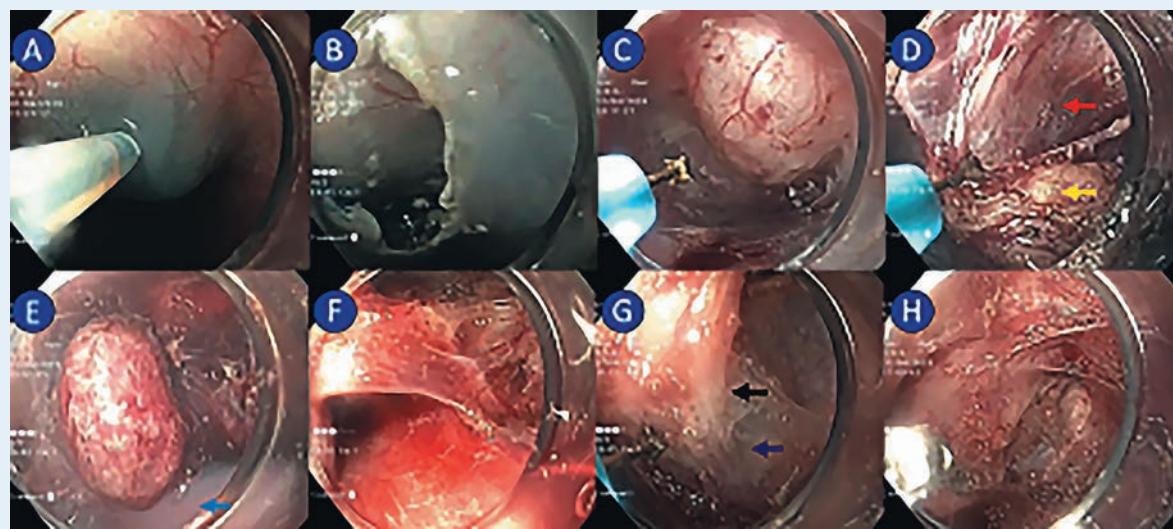


Рис. 3. Эндоскопические фотографии этапов операции: А – введение раствора в подслизистый слой; В – выполнен разрез слизистой оболочки; С – выделена часть кисты, находящаяся в подслизистом слое; Д – рассечение фиброзных волокон по наружному краю образования (желтая стрелка – мышечные волокна, «ходящие» с препаратом; красная стрелка – фиброзные волокна в средостении); Е – киста практически полностью отделена от сращений (синяя стрелка – содержимое кисты в тоннеле); Ф – натянутые соединительнотканые волокна, как эффект тракции образования; Г – визуализация края капсулы (черная стрелка – капсула кисты; фиолетовая стрелка – соединительнотканые сращения); Н – препарат удален

осложнений, что в совокупности с низким риском малигнизации, даже при их обнаружении, диктовало консервативную тактику ведения. В связи с тем, что частота бронхогенных кист пищевода в популяции минимальна, нет единых показаний к удалению этих образований, а также нет исследований по выбору оптимального способа их удаления. В последние годы появились малоинвазивные эндоскопические методики удаления, которые сопряжены с минимальным процентом осложнений и отличными не-посредственными клиническими результатами, однако, отдаленные результаты до настоящего времени не изучены.

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

С 4 лет у девочки отмечались неврозоподобные приступы, проявляющиеся дискомфортом в области груди и живота, которые с возрастом стали ежедневными, появлялись во сне и при бодрствовании, сопровождались навязчивым слатыванием слюны, покраснением лица, испариной, расширением зрачков; в возрасте 6 лет появились судороги. В РДКБ (г. Москва) в отделении неврологии и был назначен финлепсин как противосудорожный препарат. При попытке его отмены в 2015 году отмечалось ухудшение состояния и терапию прошлось возобновить.

В сентябре 2016 года во время очередного обследования по поводу судорог (г. Новосибирск) было выявлено кистозное образование средостения, предположительно исходящее из пищевода. По данным эндосонографии (ЭУС) от октября 2016 года была заподозрена гастроинтестинальная стромальная опухоль (ГИСО) пищевода с распадом, размерами 30x15мм, имеющее связь с мышечной пластикой. 17.11.2016 года было выполнено иссечение кисты н/з пищевода торакоскопическим доступом с внутривидо-просветной эндоскопической ассистенцией, которая по данным гистологии оказалось бронхогенной кистой. При контрольном рентген-контрастном исследовании пищевода деформаций контура пищевода выявлено не было; пациентка отмечала положительную динамику в виде отсутствия судорог, изжоги и болей в животе.

При контрольном обследовании в октябре 2017 года на эзофагогастродуоденоскопии (ЭГДС) были выявлены признаки грыжи пищеводного отверстия диафрагмы (ГПОД), недостаточности кардии, патологический гастроэзофагеальный рефлюкс; в н/з пищевода по правой стенке отмечалось выбухание слизистой овальной формы 1,5x2 см. В ноябре 2018 года в РДКБ (г. Москва) была выполнена фундопликация по Ниссену через лапаротомный доступ; от одномомент-

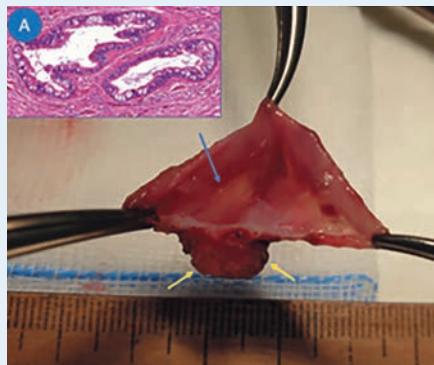


Рис. 4. Удаленный препарат:
А – фото гистологического препарата –
бронхогенная киста (HE x200);
В – ножницами вскрыт удаленный
препарат: желтые стрелки – наружная
капсула кисты; синяя стрелка –
внутренняя выстилка кисты

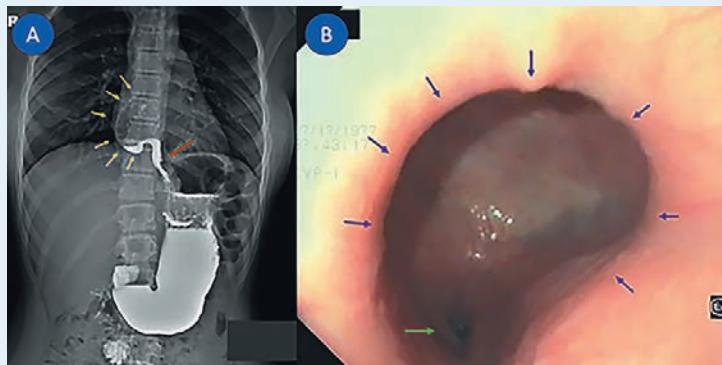


Рис. 5. Обследование через 6 месяцев после операции: А – контрастная
рентгенограмма пищевода: желтые стрелки – деформация контура
в зоне удаленного образования; красная стрелка – область пищеводно-
желудочного перехода со свободным поступлением контраста в желудок;
Б – видеозэзофагоскопия: зеленая стрелка – область пищеводно-
желудочного перехода; фиолетовые стрелки – проксимальный край
дивертикулоподобного выпячивания

ментного иссечения кисты пищевода решено было воздержаться. В течение месяца после операции жалоб не было, а затем они возобновились.

В январе 2019 года была обследована в гастроэнтерологическом отделении СПбГПМУ (г. Санкт-Петербург) с жалобами на ежедневные боли в животе, отрыжку, тошноту, и изжогу, возникавшую после каждого приема пищи. При ЭГДС определялась постфундопликационная манжета, а также подслизистое образование в н/з грудного отдела пищевода, которое по данным мультиспиральной компьютерной томографии (МСКТ) имело структуру кисты, умеренно накапливая контраст, размерами 28x15x17мм. По данным ЭУС образование находилось на 30 см от резцов, имело гипоэхогенную эхоструктуру, интимно прилежало к аорте и перикарду. Описанные выше находки были расценены как рецидив кисты пищевода, было принято решение об оперативном лечении.

01.04.2019 года была выполнена подслизистая тоннельная эндоскопическая резекция кисты пищевода. Инициирующий разрез (ИР) для входа в подслизистый слой был выполнен по правой стенке пищевода на 4 см выше видимого из просвета проксимального края образования. Отделение кисты от слизистой оболочки было выполнено с техническими сложностями в связи с выраженным фиброзными изменениями подслизистого слоя. Также фиброзные изменения наблюдались по наружному краю образования, где оно было выделено из паразо-

фагеальных тканей. В процессе энуклеации кисты последняя вскрылась при незначительном контакте электроножа с капсулой, вязкое белесоватое содержимое было аспирировано через канал эндоскопа. Для создания «тракции» была применена методика подтягивания за петлю, проведенную параллельно эндоскопу, которая была затянута на проксимальном полюсе образования. Данный прием позволил выделить образование вместе с капсулой. Последним этапом выполнено закрытие ИР клипсами.

Послеоперационный период протекал гладко. На контрольных рентгенограммах грудной клетки с контрастированием – затеков контраста не определялось. Проводилось постепенное расширение энтерального питания, к моменту выписки восстановлено в полном объеме. По данным гистологического заключения образование являлось бронхогенной кистой. Девочка была выписана в удовлетворительном состоянии на 9-е сутки. После выписки пациентка чувствовала себя хорошо, жалоб не предъявляла. На контрольных рентгенограммах, выполненных через 6 месяцев, отмечается дивертикулоподобное расширение в зоне операции.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Проблема определения показаний к удалению подслизистых образований, в частности кист стенки пищевода, окончательно не решена. В настоящее время

резекцией этих опухолей занимаются как торакальные хирурги, так и оперирующие специалисты гибкой эндоскопии, причем в распоряжении последних имеется наименее травматичная в настоящее время операция – подслизистая тоннельная резекция. В клинической практике показания к операции находится в диапазоне от полного отрицания необходимости удаления каких-либо подслизистых опухолей пищевода до удаления хирургическим доступом небольших образований, что и случилось в описываемом нами клиническом случае. Малоинвазивный торакоскопический хирургический доступ, и, тем более, открытая торакотомия при удалении подслизистых опухолей пищевода имеют высокий процент осложнений, доходящий до 30%, что не сопоставимо с минимальным риском, сохраняющимся при выборе тактики наблюдения за этими образованиями. Другой проблемой является сложность поиска и резекции небольших опухолей, исходящих из мышечного слоя при традиционных доступах, что может приводить к локальным рецидивам. Эндоскопический тоннельный доступ, на наш взгляд, является оптимальным при поиске и удалении подслизистых образований пищевода, к которым также относятся

бронхогенные кисты. Это было продемонстрировано в нашем клиническом случае: при помощи тоннельной методики удалось в течение короткого времени подойти непосредственно к капсуле кисты, выделить ее под контролем эндоскопической визуализации и удалить единым блоком, даже учитывая то, что нам встретились выраженные фиброзные изменения. Несмотря на радикальное удаление образования и хороший клинический эффект непосредственно после операции необходимо отметить, что в последующем в области операции сохранилась дивертикулоподобная деформация контура пищевода, что может быть связано с повышенным тонусом в области НПС за счет наличия фундопликационной манжетки. Наблюдение за пациенткой будет продолжено и, вероятно, ей потребуется выполнение манометрии пищевода высокого разрешения для объективизации давления в области пищеводно-желудочного перехода. Влияние тонуса нижнего пищеводного сфинктера (НПС), а также фундопликационной манжетки на отдаленные результаты тоннельных резекций в пищеводе требуют дальнейшего изучения с включением в исследование большего количества пациентов и отслеживанием отдаленных результатов.

ЛИТЕРАТУРА

- Rogers LF, Osmer JC. Bronchogenic cyst. A Review of 46 cases. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med. 1964;91:273-290.
- Thaller P, Blanchet C, Neonatal respiratory distress syndrome revealing a cervical bronchogenic cyst: a case report. BMC Pediatr. 2015 Jun 27; 15():72,
- Turkyilmaz A., Eroglu A., Subasi M., Findik G. Intramural esophageal bronchogenic cysts: a review of the literature Diseases of the Esophagus (2007) 20, 461–4652.
- Tiwari M. K. и др. Mediastinal bronchogenic cyst presenting with dysphagia and back pain // Lung India. 2010. T. 27. № 2. С. 86–88.
- Zylak CJ, Eyler WR, Spizarny DL et-al. Developmental lung anomalies in the adult: radiologic-pathologic correlation. Radiographics. 2002;22 Spec No (suppl_1): S25-43
- Georges R, Deslauriers J, Duranceau A, et al. Clinical spectrum of bronchogenic cysts of the mediastinum and lung in the adult. Ann Thorac Surg. 1991;52(1):6-13. doi:10.1016/0003-4975(91)91409-o
- Hasegawa T, Murayama F, Endo S, et al. Recurrent bronchogenic cyst 15 years after incomplete excision. Interact Cardiovasc Thorac Surg. 2003;2:685-687
- Ustundag E, Iseri M, Keskin G, Yayla B, Muezzino glu B. Cervical bronchogenic cysts in head and neck region. J Laryngol Otol. 2005;119(6):419-423. doi:10.1258/0022215054273188St-
- Yang X, Guo K. Bronchogenic cyst of stomach: two cases report and review of the English literature. Wien Klin Wochenschr 2013;125:283–287
- Han C, Lin R, Yu J, et al. A Case Report of Esophageal Bronchogenic Cyst and Review of the Literature With an Emphasis on Endoscopic Ultrasonography Appearance. Medicine (Baltimore). 2016;95(11):e3111. doi:10.1097/MD.0000000000003111
- Altieri MS, Zheng R, Pryor AD, Heimann A, Ahn S, Telem DA. Esophageal bronchogenic cyst and review of the literature. Surg Endosc. 2015;29(10):3010-3015. doi:10.1007/s00464-015-4082-42.

12. McAdams HP, Kirejczyk WM, Rosado-de-Christenson ML, Matsumoto S. Bronchogenic cyst: imaging features with clinical and histopathologic correlation. Radiology. 2000;217(2):441-446. doi:10.1148/radiology.217.2.r00nv19441
13. Chuang KH, Huang TW, Cheng YL, et al. Esophageal bronchogenic cyst: a rare entity. Zeitschrift fur Gastroenterologie. 2007;45:958-960
14. Kirmani B, Kirmani B, Soglian F. Should asymptomatic bronchogenic cysts in adults be treated conservatively or with surgery?. Interact Cardiovasc Thorac Surg. 2010;11 (5): 649-665
15. Pugatch RD, Faling LJ, Robbin AN, et al. CT diagnosis of benign mediastinal abnormalities. AJR Am J Roentgenol. 1980;134:685-689659
16. Patel SR, Meeker DP, Biscotti CV, Kirby TJ, Rice TW. Presentation and management of bronchogenic cysts in the adult. Chest. 1994;106(1):79-85. doi:10.1378/chest.106.1.79
17. Sashiyama H, Miyazaki S, Okazaki Y et al. Esophageal bronchogenic cyst successfully excised by endoscopic mucosal resection. Gastrointest Endosc 2002; 56: 141-145
18. Westerterp M, van den Berg JG, van Lanschot JJ, Fockens P. Intramural bronchogenic cysts mimicking solid tumors. Endoscopy. 2004;36(12):1119-1122. doi:10.1055/s-2004-826042
19. Lee SH, Park DH, Park JH, et al. Endoscopic mucosal resection of a gastric bronchogenic cyst that was mimicking a solid tumor. Endoscopy. 2006;38 Suppl 2:E12-E13. doi:10.1055/s-2006-944862
20. Xu M.-D. и др. Submucosal tunneling endoscopic resection: a new technique for treating upper GI submucosal tumors originating from the muscularis propria layer (with videos). // Gastrointest. Endosc. 2012. Т. 75. № 1. С. 195-9.
21. Tang X., Jiang B., Gong W. Endoscopic submucosal tunnel dissection of a bronchogenic esophageal cyst // Endoscopy. 2014. Т. 46. С. E626-E627.

СВЕДЕНИЯ ОБ АВТОРАХ

Александр Александрович Смирнов, руководитель отдела эндоскопии НИИ хирургии и неотложной медицины ГБОУ ВО ПСПБГМУ им. акад. Павлова, кандидат медицинских наук, доцент кафедры госпитальной хирургии № 2, ФГБОУ ВО ПСПБГМУ им. акад. Павлова, г. Санкт-Петербург, (smirnov-1959@yandex.ru). +79217712468; 0000-0002-6440-2370.

Александр Леонидович Копяков, детский хирург, заведующий эндоскопическим отделением ФГБОУ ВО СПБПМУ МЗ РФ, г. Санкт-Петербург; alexander_spb@mail.ru.

Марина Магомедовна Саадулаева, врач-эндоскопист, отделения эндоскопии № 1 НИИ хирургии и неотложной медицины ФГБОУ ВО ПСПБГМУ им. акад. Павлова, Санкт-Петербург, (many_a_sadik@mail.ru).

Евгения Сергеевна Блинова, врач-эндоскопист отделения эндоскопии № 1 НИИ хирургии и неотложной медицины; evgeniya.karmolina@gmail.com).

Сергей Фёдорович Багненко, д-р мед. наук, профессор, академик РАН, ректор ПСПБГМУ имени И. П. Павлова (bagnenko_spb@mail.ru).

Автор для связи: Саадулаева Марина Магомедовна, ФГБОУ ВО «Первый Санкт-Петербургский государственный медицинский университет имени академика И. П. Павлова» МЗ РФ, 197022, Россия, Санкт-Петербург, ул. Льва Толстого, д. 6-8. E-mail: manya_sadik@mail.ru.