DOI: 10.31146/1682-8658-ecg-177-5-99-103

Лимфангиомы сальника у ребенка

Никитин А.В.^{1,2}, Хавкин А.И.¹, Скворцова Т.А.¹, Волюнец Г.В.¹, Атамеева А.О.²

¹РНИМУ им. Н.И. Пирогова, 125412, г. Москва, ул. Талдомская, дом 2

²Морозовская детская городская клиническая больница ДЗ гор. Москвы, 119049, Москва, 4-й Добрынинский переулок 1/9

Omentum lymphangioma in a child

A.V. Nikitin^{1,2}, A.I. Khavkin¹, T.A. Skvortsova¹, G.V. Volynets¹, A.O. Atameeva²

¹Pirogov Russian National Research Medical University, 125412, Moscow, st. Taldomskaya, Building 2

²Morozov Children's Clinical Hospital, Moscow Department of Health, 119049 Moscow, 4th Dobryninsky Lane 1/9, Building 17

Для цитирования: Никитин А.В., Хавкин А.И., Скворцова Т.А., Волюнец Г.В., Атамеева А.О. Лимфангиомы сальника у ребенка. Экспериментальная и клиническая гастроэнтерология. 2020;177(5): 99–103. DOI: 10.31146/1682-8658-ecg-177-5-99-103

For citation: Nikitin A.V., Khavkin A.I., Skvortsova T.A., Volynets G.V., Atameeva A.O. Omentum lymphangioma in a child. *Experimental and Clinical Gastroenterology*. 2020;177(5): 99–103. (In Russ.) DOI: 10.31146/1682-8658-ecg-177-5-99-103

Никитин Артём Вячеславович, кандидат медицинских наук, ассистент кафедры гастроэнтерологии, ведущий научный сотрудник ОСП НИКИ педиатрии им. Академика Ю.Е. Вельтищева

Хавкин Анатолий Ильич, доктор медицинских наук, профессор, главный научный сотрудник отдела гастроэнтерологии ОСП НИКИ педиатрии им. академика Ю.Е. Вельтищева

Скворцова Тамара Андреевна, к.м.н., заведующая отделением гастроэнтерологии; главный внештатный детский специалист-гастроэнтеролог ДЗМ; доцент кафедры гастроэнтерологии

Волюнец Галина Васильевна, доктор медицинских наук, руководитель отдела гастроэнтерологии ОСП НИКИ педиатрии им. академика Ю.Е. Вельтищева

Атамеева Анастасия Олеговна, клинический ординатор

Artem V. Nikitin, MD, PhD, assistant of department of gastroenterology; doctor department of gastroenterology; ORCID: 0000-0001-8837-9243

Anatoly I. Khavkin, MD, PhD, Dr Sci, professor, Veltishev Research and Clinical Institute for Pediatrics, Senior Researcher, Department of Gastroenterology; ORCID: 0000-0001-7308-7280

Tamara A. Skvortsova, MD, Head of the Department of Gastroenterology; chief freelance children's specialist-gastroenterologist HCM; Associate Professor, Department of Gastroenterology; ORCID: 0000-0002-6525-8665

Galina V. Volynets, MD, PhD, Dr Sci, Veltishev Research and Clinical Institute for Pediatrics, Head of the Department of Gastroenterology; ORCID: 0000-0002-5413-9599

Anastasiya O. Atameeva, Intern; ORCID: 0000-0002-5091-0219

✉ **Corresponding author:**

Хавкин Анатолий Ильич
Anatoly I. Khavkin
gastropedclin@gmail.com
ORCID: 0000-0001-7308-7280

Резюме

В статье представлен клинический случай лимфангиомы сальника у ребёнка, которая была успешно резецирована путем открытой лапароскопии. Данный клинический случай говорит о необходимости настороженности в отношении новообразований брюшной полости, которые в течение длительного времени могут протекать на фоне неспецифических жалоб или же бессимптомно, а также демонстрирует положительную динамику на фоне проведенной терапии.

Ключевые слова: лимфангиом сальника у ребёнка, опухоль в брюшной полости

Summary

The article presents a clinical case of omentum lymphangioma in a child, which was successfully resected by open laparoscopy. This clinical case indicates the need for caution in relation to tumors of the abdominal cavity, which for a long time can occur against the background of nonspecific complaints or asymptotically, and also shows positive dynamics against the background of the therapy.

Keywords: omentum lymphangiomas in a child, abdominal tumor

Введение

Лимфангиома – доброкачественная опухоль сосудистой природы, которая развивается из эмбрионального лимфатического мешка. Лимфангиомы встречаются значительно реже, чем гемангиомы, и составляют примерно 10–12% всех доброкачественных новообразований у детей, встречается с частотой от 1 на 20–250 тыс. поступлений в хирургические стационары [1]. Точная этиология лимфангиом не установлена, однако предположительно этиологическими факторами являются аномалии эмбриогенеза, геномные и генные мутации, интоксикации. Большая часть таких образований рассматривается как врожденные сосудистые мальформации, а не истинные опухоли [2–5]. В большинстве случаев лимфангиома обнаруживается у детей в первый год жизни, но может встречаться в любом возрасте [2]. Чаще всего лимфангиомы локализованы на шее и в подмышечной области, реже они локализованы в забрюшинном пространстве, органах брюшной полости, брыжейке, легких, средостении. Интраабдоминальная лимфангиома

может сопровождаться болью в животе, тошнотой, анорексией, признаками кишечной непроходимости, у некоторых детей может отмечаться асимметричное увеличение живота, пальпироваться безболезненная опухоль [4]. Лимфангиомы малых размеров могут протекать бессимптомно. Сосудистые мальформации, локализованные в забрюшинном пространстве или органах брюшной полости могут вызывать такие осложнения, как острая кишечная непроходимость, инфаркт стенки кишки, разрыв кисты в брюшную полость с развитием перитонита. Инструментальная диагностика лимфангиомы заключается в проведении ультразвукового исследования, магнитно-резонансной томографии, компьютерной томографии, а пункция новообразования и гистологическое исследование пунктата позволяют определить форму опухоли. Лечение лимфангиомы хирургическое, заключающееся в основном в радикальном иссечении опухолевого очага [3, 5]. Своевременная коррекция делает прогноз благоприятным, однако все же существует риск рецидива.

Клинический случай

Ребенок П в возрасте 3 лет поступил в гастроэнтерологическое отделение Морозовской детской городской клинической больницы (МДГКБ). Из анамнеза известно, что ребенок от 1 беременности путем ЭКО, родов на 39 неделе, вес при рождении 3580 г, 54 см, оценка по шкале Апгар 8/9, рос и развивался по возрасту, от профилактических прививок мать отказывалась, хронические заболевания отрицает. С сентября 2018 года у ребенка начались запоры, в связи с чем со слов матери самостоятельно принимали слабительное средство с незначительным положительным эффектом. В марте 2019 года мать обратила внимание на увеличение живота ребенка, обратились к педиатру по месту жительства. Было назначено УЗИ органов брюшной полости, но в связи с длительным ожиданием данное исследование было проведено в частном центре. По результатам УЗИ был выявлен асцит, в связи с чем была вызвана бригада СМП и ребенок доставлен в ГКБ г. Костромы. В стационаре было повторно проведено УЗИ органов брюшной полости, а также лабораторные исследования крови и мочи, проведена консультация генетика. В связи с отсутствием по мнению матери эффекта от оказываемой медицинской помощи, в мае 2019 года мать отказалась от данной госпитализации, ребенок был выписан. Через трое суток ребенок поступил в приемное

отделение МДГКБ, где было проведено ультразвуковое исследование органов брюшной полости, в ходе которого были выявлены эхографические признаки увеличения линейных размеров печени (правая доля 100 мм, левая доля 55 мм, паренхима однородная, обычной эхогенности). В брюшной полости определялось значительное количество неоднородной за счет септ и взвеси свободной жидкости примерным объемом 400–450 мл. Петли кишечника не расширены, стенки не изменены. На основании данных ультразвукового исследования органов брюшной полости было принято решение о проведении компьютерной томографии брюшной полости по техническим, физиологическим причинам без в/в контрастирования. По результатам данного исследования определялось большое количество жидкости в параколитических каналах, околопеченочном пространстве примерным объемом до 1600 мл, которая вызывает смещение кишечника вправо, мочевого пузыря вниз, отесняет прямую кишку кзади. Печень ККР до 94 мм, на ее фоне прослеживаются расширенные правая и левая портальные вены. (Рис. 1).

По результатам проведенного КТ-исследования ребенок был консультирован хирургом: показания к проведению оперативного вмешательства в экстренном порядке отсутствовали, рекомендовано

Рисунок 1.
КТ-картина асцита,
КТ-признаки портальной
гипертензии.

Figure 1.
CT scan of ascites, CT signs
of portal hypertension

Рисунок 2.
КТ-картина участков
консолидации легочной
паренхимы в задних отделах
обоих легких с единичными
субплевральными буллами,
с признаками неравномерной
пневматизации легочной
паренхимы. Прогрессирование
асцита, мезентериальной
лимфаденопатии.

Figure 2.
CT scan of the sites of con-
solidation of the pulmonary
parenchyma in the posterior
sections of both lungs with
single subpleural bullae, with
signs of uneven pneumatiza-
tion of the pulmonary paren-
chyma. Progression of ascites,
mesenteric lymphadenopathy.

дообследование с решением вопроса о дальнейшей тактике лечения. Далее ребенок был переведен в гастроэнтерологическое отделение.

При поступлении общее состояние средней степени тяжести, ребенок на осмотр реагирует адекватно, не лихорадит, язык обложен белым налетом, живот мягкий, болезненный при пальпации в околопупочной зоне и по ходу петель толстой кишки, заполненной кишечным содержимым. По данным лабораторных исследований анемия, цитоз и цитопения, ускорение СОЭ были исключены, цитолитической активности, холестаза, иммунологической активности, воспалительной активности, электролитных нарушений, гипогликемии и признаков поражения почек установлено не было, пигментный обмен не нарушен, белково-синтетическая функция печени сохранена, обмен железа не нарушен. Онкомаркеры в пределах референсных значений, концентрационная функция почек сохранена, воспалительные изменения отсутствовали, глюкозурии и протеинурии не выявлено, при исследовании гемостаза склонности к коагулопатии не выявлено.

Был выставлен предварительный диагноз – запор; нельзя исключить болезнь Гиршпрунга. Планово была проведена обзорная рентгенография органов брюшной полости, по результатам которой были выявлены признаки динамической кишечной непроходимости, и ректосигмоидоскопия, в ходе проведения которой в прямой кишке были обнаружены три элемента фолликулов с эрозированной верхушкой, из-за плохой подготовки нельзя было исключить контактный дефект.

Учитывая выявленные ранее КТ-признаки портальной гипертензии, была проведена фиброэзофагогастродуоденоскопия (ФЭГДС) с целью выявления варикозного расширения вен пищевода (ВРВП) и определения его степени. По результатам

данного исследования пищевод свободно проходим, слизистая бледно-розовая, вены пищевода не расширены, слизистая желудка в области тела и дна розовая, в антральном отделе очагово гиперемирована – антральный гастрит.

Был проведен консилиум, по заключению которого у мальчика не исключается дебют лимфопролиферативных заболеваний. С целью исключения онкопатологии было принято решение о необходимости проведения аспирационной биопсии костного мозга, а также решено проводить КТ ОБП и грудной клетки с контрастированием полостей.

Была проведена компьютерная томография органов грудной клетки, брюшной полости и забрюшинного пространства с контрастным усилением, по результатам которой сохранялось большое количество жидкости примерным объемом до 1738 мл в параколитических каналах, околопеченочном пространстве, которая вызывает смещение кишечника вправо, мочевого пузыря вниз, оттесняет прямую кишку кзади. Печень ККР до 92 мм, на ее фоне прослеживаются расширенные правая – 7,6 мм и левая – 7,3 мм портальные вены. Портальная вена диаметром до 10,5 мм. В задних отделах легких с двух сторон на всем протяжении определяются участки консолидации легочной паренхимы, на фоне которых визуализируются единичные буллы, максимальными размерами 7х3 мм (S6 справа). (Рис. 2)

Ребенку проводилась спазмолитическая, диуретическая терапия, а также терапия ветрогонными препаратами. Была проведена магнитно-резонансная томография брюшной полости с захватом малого таза: выраженный асцит с дислокацией органов брюшной полости и малого таза. В брюшной полости отмечалось большое скопление жидкости с оттеснением кверху печени, селезенки, книзу

мочевого пузыря, кзади прямой кишки. Кишечник смещен кпереди и вправо. Кранио-каудальный размер правой доли печени до 90 мм. Размеры правой и левой печеночных вен до 7 мм, поперечный размер портальной вены до 8 мм.

В постнаркозном периоде отмечалась фебрильная лихорадка, в связи с чем ребенку была добавлена антипиретическая терапия.

По результатам аспирационной биопсии костного мозга признаков гемабластоза не выявлено, по данным контрольных лабораторных исследований воспалительных изменений крови не было.

Повторно был проведен консилиум, по заключению которого ребенку было показано проведение диагностической лапароскопии, в связи с чем для проведения данного исследования и решения вопроса о дальнейшей тактике ведения пациента, он был переведен в хирургическое отделение МДГКБ.

При поступлении в хирургическое отделение общее состояние тяжелое, без отрицательной динамики, ребенок не лихорадил, положение активное, язык был обложен белым налетом, живот увеличен в объеме, в акте дыхания участвовал равномерно, при пальпации мягкий, вздут, безболезненный во всех отделах, окружность живота 59 см. Печень у края реберной дуги, край заострен, поверхность гладкая, паренхима не уплотнена. Селезенка не пальпировалась; стул после клизмы накануне вечером, без примесей. Ребенку был выставлен диагноз – D13.9. Доброкачественное новообразование неточно обозначенных локализаций в пределах пищеварительной системы. Учитывая данные анамнеза, клиническую картину, результаты лабораторных и инструментальных исследований ребенку была проведена диагностическая лапароскопия, биопсия мезентериального лимфоузла, исследование жидкости из брюшной полости на посев и цитологическое исследование.

Под эндотрахеальным наркозом была произведена открытая лапароскопия, в брюшную полость введено три 5 мм. троакара. При ревизии брюшной полости было выявлено огромное кистозное тонкостенное многокамерное новообразование, занимающее практически всю брюшную полость (от малого таза до нижнего края печени и большой кривизны желудка), условными размерами 25×20 см., через стенку просвечивался бурый жидкостной компонент. Брюшина была интактна, блестящая. Свободной жидкости в брюшной полости не выяв-

лено. Выполнена конверсия. Произведена срединная лапаротомия, разрез длиной до 12 см. В лапаротомную рану выведено данное образование, которое исходило из сальника. Была произведена пункция кистозного образования, содержимое взято на бактериологическое, цитологическое и биохимическое исследования. Остаточный жидкостной компонент в объеме 1,7 литра аспирирован. Произведена резекция сальника по грацие с большой кривизной желудка в пределах неизмененных тканей при помощи Liga Sure. Также произведена ревизия сальниковой сумки, патологии не выявлено. Контроль гемостаза, сухо. В малый таз установлен страховочный дренаж. Наложены послойные швы на раны.

После проведенного оперативного вмешательства ребенок был переведен в отделение реанимации и интенсивной терапии, где находился в течение 4 суток. Послеоперационный период протекал на фоне пареза кишечника и желудка, к терапии было добавлено антихолинэстеразное средство.

При проведении динамических ультразвуковых контрольных исследований органов брюшной полости отмечалось уменьшение газонаполнения, дилатации петель кишечника, появление направленной перистальтики кишечника. Расширения полости желудка не отмечено. Скопления свободной жидкости в брюшной полости выявлено не было. В терапии прослеживалась положительная динамика, а также проводилось постепенное расширение энтерального лимита, в связи с чем ребенок из отделения реанимации и интенсивной терапии был переведен в хирургическое отделение. По результатам прижизненного патолого-анатомического исследования биопсийного материала было выявлено кистозное образование, стенки которого представлены жировой тканью с внутренней выстилкой их одного слоя уплощенных клеток. При ИГХ исследовании клетки внутренней выстилки позитивны в реакциях с антителами к CD31 и негативны к CD34 – лимфангиома. Учитывая данные анамнеза, результаты клинико-лабораторных исследований, патоморфологического исследования и инструментальных обследований пациенту был выставлен заключительный клинический диагноз: D13.9. Лимфангиома сальника. На 10-е послеоперационные сутки ребенок был выписан в удовлетворительном состоянии с выздоровлением под наблюдением хирурга, педиатра, гастроэнтеролога по месту жительства.

Выводы

Таким образом, уникальность представленного клинического наблюдения заключается в наличии у пациента значительных размеров новообразования, занимающего практически всю брюшную полость – от малого таза до нижнего края печени и большой кривизны желудка, – выявленного при проведении хирургического лечения, на фоне неспецифических жалоб. Также при этом отсутствовали отклонения по результатам лабораторных исследований, по данным инструментальных исследований был выявлен асцит с дислокацией органов брюшной полости

и малого таза, а также портальная гипертензия, выявление причины которых потребовало времени, что отсрочило постановку диагноза. К тому же описанная клиническая симптоматика возникла в раннем возрасте, тогда как данная патология в большинстве случаев проявляется на первом году жизни ребенка. В связи с наличием у пациентов неспецифических жалоб, диагностика лимфангиом брюшной полости представляет определенные трудности, а своевременно выполненное хирургическое лечение приводит к выздоровлению пациента.

Литература | References

1. Hamaguchi Y, Arita S, Sugimoto N, Inamoto O, Takagi H, Kogire M, Kitai T. (2020). Laparoscopic resection of abdominal cystic lymphangioma derived from lesser omentum: Case report. Pubmed 2020 Jan;99(1): e18641. doi: 10.1097/MD.00000000000018641
2. Maranna H, Bains L, Lal P, Bhatia R, Beg MY, Kumar P, Mallya V. (2020) Cystic Lymphangioma of the Greater Omentum: A Case of Partial Spontaneous Regression and Review of the Literature. Pubmed 2020 Jan 28;2020:8932017. doi: 10.1155/2020/8932017. eCollection 2020
3. Târcoveanu E, Moldovanu R, Bradea C, Vlad N, Ciobanu D, Vasilescu A. (2016) Laparoscopic Treatment of Intraabdominal Cystic Lymphangioma. Pubmed 2016 May-Jun;111(3):236–41.
4. Karhan AN, Soyer T, Gunes A, Talim B, Karnak I, Oguz B, Saltik Temizel IN. (2016) Giant Omental Cyst (Lymphangioma) Mimicking Ascites and Tuberculosis. Pubmed 2016 May 24;13(3): e31943. eCollection 2016 Jul.
5. Eijun Itakura, Hidetaka Yamamoto, Yoshinao Oda, Masutaka Furue, Masazumi Tsuneyoshi. VEGF C and VEGFR3 in a series of lymphangiomas: Is superficial lymphangioma a true lymphangioma? Virchows Arch 2009; 454: 317–25 DOI 10.1007/s00428–008–0720–8