

Клинический случай
УДК: 616.21

ТРАНСНАЗАЛЬНОЕ ЭНДОСКОПИЧЕСКОЕ УДАЛЕНИЕ ЮВЕНИЛЬНОЙ ОССИФИЦИРУЮЩЕЙ ФИБРОМЫ СИНОНАЗАЛЬНОЙ ОБЛАСТИ И ОСНОВАНИЯ ЧЕРЕПА У РЕБЕНКА

Н.С. Грачев^{1,2}, И.Н. Ворожцов¹, А.И. Горожанина¹

¹ Федеральное государственное бюджетное учреждение «НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева» Минздрава России, г. Москва, Россия

² Медицинский институт непрерывного образования ФГБОУ ВО «Российский биотехнологический университет (РОСБИОТЕХ)», г. Москва, Россия

АННОТАЦИЯ

В публикации представлен клинический случай ювенильной оссифицирующей фибромы полости носа, околоносовых пазух и основания черепа с компрессией орбиты у ребенка 10 лет. Пациентке было проведено трансназальное эндоскопическое удаление опухоли, через 12 месяцев было выполнено ревизионное эндоскопическое вмешательство в связи с рецидивом заболевания. После хирургического лечения у пациентки нет данных за рецидив и продолженный рост образования в течение 3-летнего периода наблюдения. В статье представлены результаты визуализационных методов обследования на пред- и послеоперационных этапах.

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА: ювенильная оссифицирующая фиброма, оссифицирующая фиброма, ювенильная трабекулярная фиброма, новообразование полости носа, новообразование основания черепа

КОРРЕСПОНДЕНЦИЯ: Горожанина Анастасия Игоревна, e-mail: Dr.gorozhanina@yandex.ru

ДЛЯ ЦИТИРОВАНИЯ: Грачев Н.С., Ворожцов И.Н., Горожанина А.И. Трансназальное эндоскопическое удаление ювенильной оссифицирующей фибромы синоназальной области и основания черепа у ребенка // Вестник Медицинского института непрерывного образования. — 2023. — Т. 3. — № 4. — С. 22–26. — DOI 10.36107/2782-1714_2023-3-4-22-26.

ИСТОЧНИК ФИНАНСИРОВАНИЯ: Авторы заявляют об отсутствии финансирования при проведении исследования.

КОНФЛИКТ ИНТЕРЕСОВ: Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией настоящей статьи.

TRANSNASAL ENDOSCOPIC REMOVAL OF A SINONASAL AND SKULL BASE JUVENILE OSSIFYING FIBROMA IN A CHILD

N.S. Grachev^{1,2}, I.N. Vorozhtsov¹, A.I. Gorozhanina¹

¹ Dmitry Rogachev National Medical Research Center of Pediatric Hematology, Oncology and Immunology, Moscow, Russia.

² Department of Otorhinolaryngology, Medical Institute of Continuing Education, Russian Biotechnological University (ROSBIOTECH), Moscow, Russia.

ABSTRACT

This article describes a clinical case of a 10-year-old patient with juvenile ossifying fibroma of the nasal cavity, paranasal sinuses and skull base, with orbital compression. The patient underwent transnasal endoscopic tumor removal. After 12 months, revision endoscopic intervention was performed due to recurrence of the disease. After surgical treatment, the patient had no evidence of recurrence or continued growth of the neoplasm during the 3-year follow-up period. The article presents the results of the visualization methods of examination at the pre- and postoperative stages.

KEYWORDS: juvenile ossifying fibroma, ossifying fibroma, juvenile trabecular fibroma, nasal cavity neoplasm, skull base tumor

CORRESPONDENCE: Gorozhanina Anastasiya, e-mail: Dr.gorozhanina@yandex.ru

FOR CITATIONS: Grachev N.S., Vorozhtsov I.N., Gorozhanina A.I.. Transnasal Endoscopic Removal of a Sinonasal and Skull Base Juvenile Ossifying Fibroma in a Child // Bulletin of the Medical Institute of Continuing Education. 2023. — V. 3. — N. 4. — P. 22–26. — DOI 10.36107/2782-1714_2023-3-4-22-26.

FUNDING SOURCE: The authors declare no funding for the study.

DECLARATION OF COMPETING INTEREST: The authors declare no apparent or potential conflicts of interest related to the publication of this article.

АКТУАЛЬНОСТЬ

Ювенильная оссифицирующая фиброма (ЮОФ) — редкое доброкачественное фиброзно-костное новообразование костей, которое встречается преимущественно в детском возрасте (8–12 лет). Наиболее часто ЮОФ поражает кости лицевого скелета черепа [1–3]. Встречаемость заболевания в абсолютном значении не изучена. Большинство научных публикаций по данной теме представлены в виде описания единичных клинических наблюдений, наиболее крупные серии клинических наблюдений в мировой литературе ограничены 5–20 пациентами [4–7]. Опухоль, как правило, имеет крупные размеры, может локализоваться сразу в нескольких анатомических областях, вызывая патологические изменения костных структур и, как следствие, асимметрию лица. Хирургический метод лечения является основным видом лечения при ЮОФ [2–4]. Отсутствие клинических рекомендаций относительно выбора метода, доступа и объема хирургического лечения данной группы пациентов подчеркивает актуальность проблемы и важность ее изучения.

ОПИСАНИЕ СЛУЧАЯ

Пациентка, 10 лет, поступила в НМИЦ ДГОИ им. Д. Рогачева МЗ РФ (г. Москва) в марте 2019 года с жалобами на затруднение носового дыхания правой половиной носа, экзофтальм справа. Из анамнеза было известно, что в течение 3-х месяцев периодически беспокоило слезотечение и покраснение век правого глаза, затруднение носового дыхания, с постепенным усилением вышеописанных симптомов. По данным компьютерной томографии (КТ) головы отмечалась картина объемного образования полости носа, околоносовых пазух и основания черепа справа с воздействием на экстраконус орбиты, медиальную прямую мышцу и глазное яблоко, экзофтальм. По месту жительства выполнена биопсия образования полости носа,

по результатам морфологического исследования был установлен диагноз «губчатая остеома, фиброзная дисплазия?».

РЕЗУЛЬТАТЫ ИССЛЕДОВАНИЯ

По результатам референс-пересмотра гистологических препаратов в НМИЦ ДГОИ — ювенильная оссифицирующая фиброма, трабекулярный тип, в связи с чем была госпитализирована в НМИЦ ДГОИ для проведения хирургического лечения.

На предоперационном этапе пациентка была осмотрена врачом офтальмологом, отмечался правосторонний экзофтальм (+1 см), двусторонняя миопия слабой степени, патологии глазного дна/признаков внутричерепной гипертензии/глазодвигательных нарушений не выявлено. При неврологическом осмотре — функции черепно-мозговых нервов сохранены.

По данным КТ, выполненной перед операцией с контрастным усилением, отмечалось объемное образование в ячейках решетчатого лабиринта, основной пазухе и полости носа справа, неоднородной структуры за счет мягкотканного и костного компонентов, не накапливающее контрастный препарат. Размеры образования — 54х30х43мм. Образование деформирует медиальную стенку правой верхнечелюстной пазухи; медиальную стенку правой глазницы с оттеснением медиальной прямой мышцы глаза и глазного яблока латерально и кпереди; носовую перегородку, смещая ее влево. Верхняя и нижние носовые раковины справа не визуализируются, нижняя смещена к низу. В обеих верхнечелюстных и правой лобной пазухах отмечается патологическое содержимое (рис.1).

Под эндотрахеальным наркозом (ЭТН) было выполнено хирургическое вмешательство в объеме трансназального эндоскопического удаления ювенильной оссифицирующей фибромы полости носа, околоносовых пазух и основания черепа справа. В ходе операции под контролем эндоскопа 0-градусов при помощи эндоскопи-

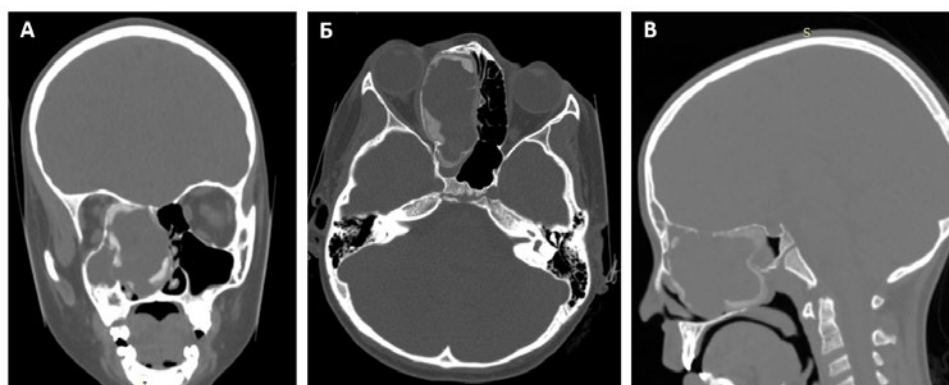


Рис. 1. КТ-изображения перед операцией.
А — коронарная проекция,
Б — аксиальная проекция,
В — сагитальная проекция

ческого инструментария и электрокоагуляции выполнен разрез слизистой оболочки, подслизисто определяется образование неоднородной консистенции, серо-белого цвета. Удален фрагмент ткани опухоли из полости носа и нижняя носовая раковина для обеспечения необходимого хирургического коридора. Далее выполнена медиальная максиллотомия и удаление компонента опухоли из полости верхнечелюстной пазухи. Затем опухоль была удалена из области решетчатого лабиринта, клиновидной пазухи справа, в том числе от основания черепа (обонятельная ямка, крыша решетчатого лабиринта, верхняя стенка клиновидной пазухи) справа. Материал отправлен на морфологическое исследование. При помощи высокоскоростного бора с алмазной фрезой выполнено удаление костной ткани в области медиальной стенки и конуса орбиты, произведен кюретаж костных стенок послеоперационной полости. Визуализировано основание черепа, имеется костный дефект в области обонятельной ямки размером 8х4 мм, твердая мозговая оболочка интактна, признаков назальной ликвореи нет. На место дефекта основания черепа уложен фрагмент материала «тахокомб». Гемостаз выполнен при помощи электрокоагуляции и гемостатического материала. В полость носа справа установлен тампон «мероцель». Кровопотеря составила 750 мл, интраоперационно потребовалось проведение гемотрансфузии донорской эритроцитарной массы (500 мл) и свжезамороженной плазмы (200 мл).

Послеоперационный период протекал без осложнений, проводилась антибактериальная, гемостатическая, противоотечная и обезболивающая терапия. По данным КТ, выполненной в 1 сутки после операции, на фоне после-

операционных изменений остаточной опухоли не выявлено. Пациентка была выписана из стационара в удовлетворительном состоянии на 4-е сутки после операции.

При проведении контрольного обследования (КТ головы) через 6 месяцев убедительных данных за наличие рецидива ЮОФ выявлено не было. По данным КТ головы, выполненной через 12 месяцев, отмечены признаки наличия подозрительного на рецидив образования в области передних ячеек решетчатого лабиринта и медиальной стенки орбиты справа (рис. 2).

По данным МРТ головы, выполненной через 12 месяцев после первичной операции, отмечалась МР-картина полости с высокобелковым содержимым в передних отделах решетчатой кости справа (остаточная ткань опухоли?), инфильтративно-воспалительные изменения слизистой верхнечелюстной, клиновидной, лобной пазух справа (рис. 3).

Учитывая клинические данные и вышеуказанные результаты обследования, было принято решение о выполнении повторного оперативного вмешательства в объеме ревизионной операции, трансназального эндоскопического удаления образования в области решетчатого лабиринта и медиальной стенки орбиты справа. Операция протекала без осложнений, кровопотеря составила 100 мл.

По результатам гистологического исследования подтвердился рецидив ювенильной оссифицирующей фибромы (трабекулярный тип). Пациентка была выписана из стационара в стабильном состоянии на 4-е сутки после операции.

В дальнейшем пациентке проводилось динамическое наблюдение, с выполнением регулярного кон-

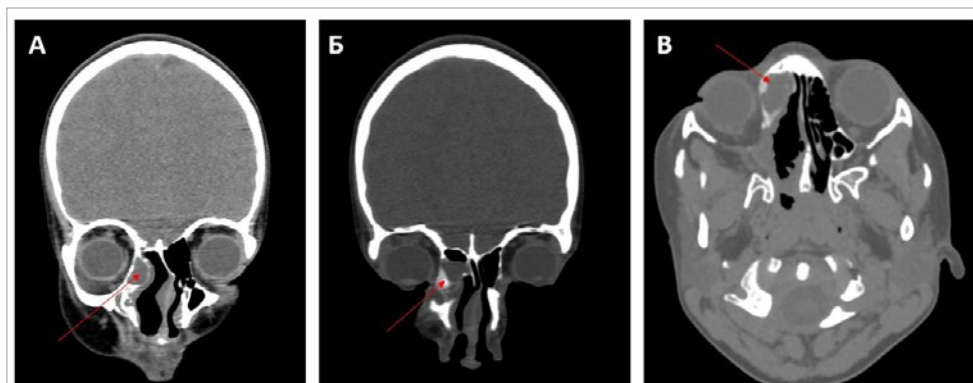


Рис. 2. КТ-изображения перед ревизионным оперативным вмешательством. А, Б — коронарная проекция, В — аксиальная проекция. Стрелка указывает на образование в области передних ячеек решетчатого лабиринта и медиальной стенки орбиты справа

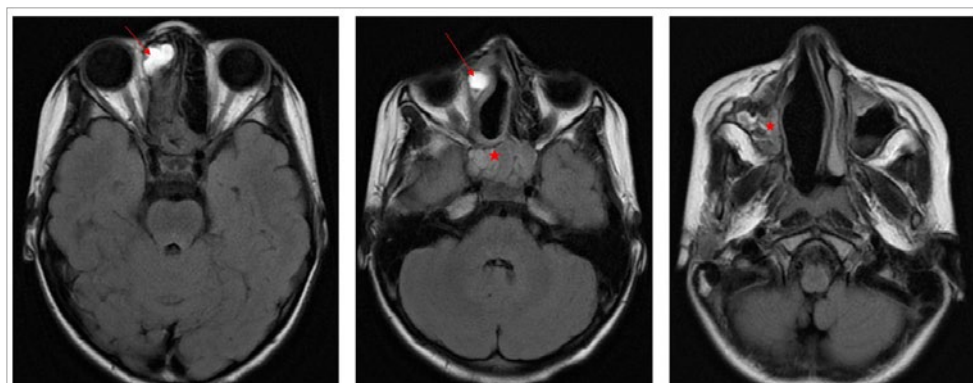


Рис. 3. МРТ-изображения перед ревизионным оперативным вмешательством в аксиальной проекции, в режиме T2 FLAIR (с ослаблением сигнала от свободной жидкости). Стрелкой указано образование, подозрительное на рецидив опухоли, в области передних ячеек решетчатого лабиринта и медиальной стенки орбиты справа; звездочкой указаны инфильтративно-воспалительные изменения слизистой верхнечелюстной, клиновидной пазух

трольного обследования (КТ головы 1 раз в 6 месяцев), наблюдение у врача оториноларинголога и офтальмолога по месту жительства. По результатам осмотра офтальмолога сохранялась миопия слабой степени без отрицательной динамики, признаков патологии глазного дна/глазодвигательных нарушений выявлено не было.

По данным заключения КТ, выполненной в 2023 г. (через 3 года после повторной операции) на фоне послеоперационных изменений достоверных признаков рецидива не выявлено, положительная динамика в виде уменьшения степени гипертрофии слизистой оболочки клиновидной и верхнечелюстной пазух (рис. 4).

ОБСУЖДЕНИЕ

Ювенильная оссифицирующая фиброма (ЮОФ) — это редкое малоизученное доброкачественное фиброно-костное новообразование, которое встречается преимущественно в детском возрасте (8–12 лет), с одинаковой частотой у мальчиков и девочек, наиболее часто поражающее кости лицевого скелета черепа, в частности, верхнюю и нижнюю челюсти. Нередко ЮОФ поражает околоносовые пазухи, в том числе с вовлечением структур основания черепа и/или стенок орбиты, с компрессией последних. Наиболее частой жалобой является асимметрия лица, которая проявляется в виде экзофтальма/смещения глазного яблока и/или выбухания щеки, в зависимости от локализации образования [1–3]. По данным компьютерной томографии ЮОФ имеет приближенную к сферической форму, четкие границы, неоднородную плотность за счет сочетания фиброзного и костного компонентов в ткани опухоли. Также характерно наличие костного

гиперденсивного ободка по периферии образования [8]. Так, в представленном клиническом наблюдении у пациентки отмечались характерные клинико-рентгенологические особенности (возраст дебюта 10 лет, жалобы на асимметрию лица за счет одностороннего экзофтальма, локализация образования в области основания черепа, околоносовых пазух, с компрессией орбиты, распространением в полость носа. Данные КТ также соответствовали вышеуказанным характерным особенностям).

Однако рентгенологические признаки не являются патогномоничными для изучаемого заболевания. Золотым стандартом диагностики ЮОФ является оценка клинической, рентгенологической и морфологической картин в совокупности, что связано с наличием схожих морфологических признаков у заболеваний из группы доброкачественных фиброно-костных поражений [9–10], в связи с чем процент расхождения морфологического диагноза может быть высоким, как и в приведенном клиническом случае: направительный диагноз (по результатам биопсии, выполненной в другом лечебно-профилактическом учреждении) не совпадал с клиническим заключительным диагнозом.

На сегодняшний день нет четких рекомендаций относительно хирургического лечения ЮОФ, однако оптимальным методом лечения изучаемого новообразования принято считать радикальное хирургическое удаление опухоли, связанное с высоким риском рецидива заболевания (30–56%) при неполном ее удалении [3]. В приведенном клиническом наблюдении также был отмечен рецидив заболевания через 12 месяцев, несмотря на макроскопически радикальное хирургическое удаление по данным интраоперационной картины и послеоперационной КТ.

Следует отметить, что радикальное хирургическое лечение ЮОФ с применением наружных доступов может быть сопряжено с повышенным риском развития нарушений эстетического и функционального характера, в то время как эндоскопический трансназальный метод хирургического лечения является малоинвазивным и ассоциирован с более краткосрочным реабилитационным периодом [11–13]. В приведенном нами клиническом случае данный метод продемонстрировал эффективность лечения ЮОФ околоносовых пазух и основания черепа ввиду отсутствия осложнений и рецидива в течение 3-летнего периода наблюдения.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

ЮОФ является редким доброкачественным новообразованием, встречающимся преимущественно в детском возрасте. Знание клинико-рентгенологических и морфологических особенностей заболевания позволяет своевременно установить правильный диагноз. Трансназальное эндоскопическое удаление ЮОФ синоназальной локализации и основания черепа является эффективным методом хирургического лечения, однако редкость и малая изученность заболевания требует дальнейшего анализа с исследованием крупных серий клинических наблюдений.

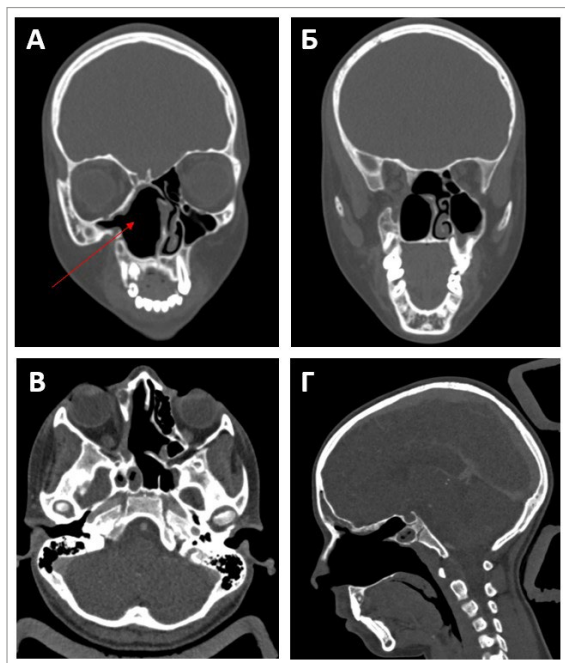


Рис. 4. КТ — изображения через 3 года после ревизионного оперативного вмешательства, по данным которого был подтвержден рецидив. А, Б — коронарная проекция на разных уровнях сканирования, В — аксиальная проекция, Г — сагитальная проекция. Стрелка указывает на послеоперационную полость. На фоне послеоперационных изменений достоверных признаков рецидива не определяется

ЛИТЕРАТУРА

1. El-Mofty S. Psammomatoid and trabecular juvenile ossifying fibroma of the craniofacial skeleton: two distinct clinicopathologic entities // Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontology. — 2002. — V. 93(3). — P. 296–304.
2. Phattaratatip E., Pholjaroen C., Tiranon P. A clinicopathologic analysis of 207 cases of benign fibro-osseous lesions of the jaws // International journal of surgical pathology. — 2014. — T. 22. — №. 4. — C. 326–333.
3. Chrcanovic B. R., Gomez R. S. Juvenile ossifying fibroma of the jaws and paranasal sinuses: a systematic review of the cases reported in the literature // International journal of oral and maxillofacial surgery. — 2020. — T. 49. — №. 1. — C. 28–37.
4. Wang M., Zhou B., Cui S., Li Y. Juvenile psammomatoid ossifying fibroma in paranasal sinus and skull base // Acta Otolaryngol. — 2017. — V. — 137(7). — P. 743–749.
5. Wang K., Ma X. J., Hao S. Y., Du J., Zhang L. W., Zhang J. T., Wu Z. Skull Base Juvenile Psammomatoid Ossifying Fibroma: Clinical Characteristics, Treatment, and Prognosis // World Neurosurg. — 2019. — V. 125. — P. e843–e848.
6. Ciniglio Appiani M., Verillaud B., Bresson D., Sauvaget E., Blancal J. P., Guichard J. P., Saint Maurice J. P., Wassef M., Karligkiotis A., Kania R., Herman P. Ossifying fibromas of the paranasal sinuses: diagnosis and management // Acta Otorhinolaryngol Ital. — 2015. — V. 35(5). — P. 355–61.
7. Han J., Hu L., Zhang C., Yang X., Tian Z., Wang Y., Zhu L., Yang C., Sun J., Zhang C., Li J., Xu L. Juvenile ossifying fibroma of the jaw: a retrospective study of 15 cases // Int J Oral Maxillofac Surg. — 2016. — V. 45(3). — P. 368–76.
8. Owosho A. A., Hughes M. A., Prasad J. L., Potluri A., Branstetter B. Psammomatoid and trabecular juvenile ossifying fibroma: two distinct radiologic entities. // Oral surgery, oral medicine, oral pathology and oral radiology. — 2014. — T. 118. — №. 6. — C. 732–738.
9. Рогожин Д. В., Булычева И. В. Ювенильная оссифицирующая фиброма у детей. Особенности дифференциальной диагностики // Саркомы костей, мягких тканей и опухоли кожи. — 2022. — №. 1. — С. 70–73.
10. Rogozhin D. V. et al. Доброкачественные фиброзно-костные поражения краннофациальной зоны у детей и подростков // Архив патологии. — 2015. — Т. 77. — №. 4. — С. 63–70.
11. Грачев Н.С., Ворожцов И.Н., Озеров С.С. Хирургическое лечение заболеваний полости носа и околоносовых пазух с использованием КТ — навигации у детей // Рос. оториноларингология. — 2014. — Т. 3 (70). — С. 40–43.
12. Грачев Н.С., Фетисов И.С., Зябкин И.В. и др. Комбинированный эндоскопический трансназальный и трансоральный доступ в хирургии венозных мальформаций крылонебной ямки. Описание клинического случая и обзор литературы. Вестник Медицинского института непрерывного образования. 2022; (1): 8–11. https://doi.org/10.46393/27821714_2022_1_8 [Grachev N.S., Fetisov I.S., Zyabkin I.V. et al. Combined endoscopic transnasal and transoral access in surgery for venous malformations of the pterygopalatine fossa. Description of a clinical case and literature review. Bulletin of the Medical Institute of Continuing Education. 2022; (1): 8–11. DOI 10.46393/27821714_2022_1_8 (In Russ.)]
13. Грачев Н.С., Самарин А.Е., Лежинская А.В. и др. Комбинированный эндоскопический трансназальный и транскраниальный доступ в хирургии трансэмоидального менингоэнцефалоцеле. Описание клинического случая. Вестник Медицинского института непрерывного образования. 2021; (1): 32–35. https://doi.org/10.46393/2782-1714_2021_1_32_35 [Grachev N.S., Samarin A.E., Vorozhtsov I.N. et al. Combined endoscopic transnasal and transcranial access in surgery of transtmoidal meningoencephalocele. Clinical case. Bulletin of the Medical Institute of Continuing Education. 2021; (1): 32–35. DOI 10.46393/2782-1714_2021_1_32_35 (In Russ.)]

ИНФОРМАЦИЯ ОБ АВТОРАХ

Грачев Николай Сергеевич — д.м.н., заместитель генерального директора ФГБУ «НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева» Минздрава России по хирургии, директор Института детской хирургии и онкологии ФГБУ «НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева» МЗ России, заведующий кафедрой оториноларингологии медицинского института непрерывного образования ФГБОУ ВО «РОСБИОТЕХ». Москва, Россия. ORCID: <http://orcid.org/0000-0002-4451-3233>

Ворожцов Игорь Николаевич — к.м.н., заместитель директора института детской хирургии и онкологии, заведующий отделением детской онкологии, хирургии головы и шеи и нейрохирургии ФГБУ «НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева» МЗ РФ. Москва, Россия. ORCID: <https://orcid.org/000-0003-3986-3770>

Горожанина Анастасия Игоревна — врач-оториноларинголог, младший научный сотрудник ФГБУ «НМИЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева» МЗ РФ. Москва, Россия. ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5314-935X>

АВТОРСКИЙ ВКЛАД

Грачев Н.С., Горожанина А.И. — концепция и дизайн исследования

Грачев Н.С., Ворожцов И.Н., Горожанина А.И. — сбор и обработка материала, хирургическое лечение

Горожанина А.И. — написание текста

Грачев Н.С., Ворожцов И.Н. — редактирование

ПОСТУПИЛА: 07.10.2023

ПРИНЯТА: 20.11.2023

ОПУБЛИКОВАНА: 15.12.2023