

Псевдоопухолевая форма поражения бронха при саркоидозе: редкое наблюдение

Н.В.Черниченко, И.О.Сусарев, Я.Ю.Мурзин, П.М.Котляров, О.П.Близнюков

Федеральное государственное бюджетное учреждение «Российский научный центр рентгенодиагностики» Министерства здравоохранения Российской Федерации: 117997, Москва, ул. Профсоюзная, 86

Информация об авторах

Черниченко Наталия Васильевна – д. м. н., ведущий научный сотрудник отдела хирургии и хирургических технологий в онкологии Федерального государственного бюджетного учреждения «Российский научный центр рентгенодиагностики» Министерства здравоохранения Российской Федерации; тел.: (499) 120-60-15; e-mail: avnvma@mail.ru

Сусарев Илья Олегович – врач-эндоскопист отделения внутриспросветной эндоскопической диагностики и лечения Федерального государственного бюджетного учреждения «Российский научный центр рентгенодиагностики» Министерства здравоохранения Российской Федерации; тел.: (499) 120-60-15; e-mail: avnvma@mail.ru

Мурзин Ярослав Юрьевич – к. м. н., врач 2-го хирургического отделения Федерального государственного бюджетного учреждения «Российский научный центр рентгенодиагностики» Министерства здравоохранения Российской Федерации; тел.: (495) 334-81-88; e-mail: murziny@list.ru

Котляров Петр Михайлович – д. м. н., профессор, заведующий научно-исследовательским отделом новых технологий и семиотики лучевой диагностики заболеваний органов и систем Федерального государственного бюджетного учреждения «Российский научный центр рентгенодиагностики» Министерства здравоохранения Российской Федерации; тел.: (495) 334-81-86; e-mail: marnad@list.ru

Близнюков Олег Петрович – д. м. н., заведующий патологоанатомическим отделением Федерального государственного бюджетного учреждения «Российский научный центр рентгенодиагностики» Министерства здравоохранения Российской Федерации; тел.: (903) 221-10-50; e-mail: blisnukov@mail.ru

Резюме

Приводится клиническое наблюдение рецидива саркоидоза внутригрудных лимфатических узлов и легких с образованием саркоидной гранулемы, имитирующей опухоль, с признаками нарушения проходимости среднедолевого и промежуточного бронхов правого легкого. Проведено эндоскопическое лазерное удаление саркоидной гранулемы бронха с использованием гольмиевого лазера УЛХК-01 (HoYAG). При сочетании эндоскопической лазерной деструкции и системной гормонотерапии в короткие сроки проведено успешное лечение, результатом которого явилось полное восстановление проходимости бронхов.

Ключевые слова: опухоли бронхов, эндоскопическая лазерная деструкция.

Для цитирования: Черниченко Н.В., Сусарев И.О., Мурзин Я.Ю., Котляров П.М., Близнюков О.П. Псевдоопухолевая форма поражения бронха при саркоидозе: редкое наблюдение. *Пульмонология*. 2017; 27 (1): 103–107. DOI: 10.18093/0869-0189-2017-27-1-103-107

Pseudotumor bronchial lesion in sarcoidosis: a rare case

Nataliya V. Chernichenko, Ilya O. Susarev, Yaroslav Yu. Murzin, Petr M. Kotlyarov, Oleg P. Bliznyukov

Federal Russian Academic Radiology Center, Healthcare Ministry of Russia; ul. Profsoyuznaya 86, Moscow, 117997, Russia

Author information

Nataliya V. Chernichenko, Doctor of Medicine, Leading Researcher, Division of Surgery and Surgical Technologies in Oncology, Federal Russian Academic Radiology Center, Healthcare Ministry of Russia; tel.: (499) 120-6015; e-mail: avnvma@mail.ru

Ilya O. Susarev, an endoscopist, Department of Intraluminal Endoscopic Diagnosis and Treatment, Federal Russian Academic Radiology Center, Healthcare Ministry of Russia; tel.: (499) 120-60-15; e-mail: avnvma@mail.ru

Yaroslav Yu. Murzin, Candidate of Medicine, a surgeon, Surgical Department No.2, Federal Russian Academic Radiology Center, Healthcare Ministry of Russia; tel.: (495) 334-71-88; e-mail: murziny@list.ru

Petr M. Kotlyarov, Doctor of Medicine, Professor, Head of Research Department of Novel Technologies and Radiological Diagnosis of Diseases, Federal Russian Academic Radiology Center, Healthcare Ministry of Russia; tel.: (495) 334-81-86; e-mail: marnad@list.ru

Oleg P. Bliznyukov, Doctor of Medicine, Head of Department of Pathology, Federal Russian Academic Radiology Center, Healthcare Ministry of Russia; tel.: (903) 221-10-50; e-mail: blisnukov@mail.ru

Abstract

A case of recurrent sarcoidosis of intrathoracic lymph nodes and the lungs with development of tumor-like sarcoid granuloma narrowing the middle lobe bronchus and the right intermediate bronchus is reported in the article. The tumor-like sarcoid endobronchial mass was destructed using endoscopic Holmium YAG laser. Combined treatment with endoscopic laser ablation and systemic steroids resulted in successful reopening the bronchi.

Key words: bronchogenic carcinoma, endoscopic laser ablation.

For citation: Chernichenko N.V., Susarev I.O., Murzin Ya.Yu., Kotlyarov P.M., Bliznyukov O.P. Pseudotumor bronchial lesion in sarcoidosis: a rare case. *Russian Pulmonology*. 2017; 27 (1): 103–107 (in Russian). DOI: 10.18093/0869-0189-2017-27-1-103-107

Саркоидоз является системным гранулематозным заболеванием неизвестной этиологии. Распространенность саркоидоза в различных странах составляет от 5,8 до 47 на 100 тыс. населения*. Считается, что данные о распространенности саркоидоза заниже-

ны, т. к. заболевание имеет доброкачественный характер, не представляет опасности для окружающих и у ряда больных характеризуется спонтанным обратным развитием [1, 2]. Сложность диагностики заключается в многообразии специфических при-

* Чучалин А.Г., ред. Саркоидоз: учебно-методическое пособие для слушателей послевузовского и дополнительного профессионального образования. Казань; 2010.

знаков, варибельности и полиорганности поражения [3, 4]. Типичными рентгенологическими признаками в диагностике саркоидоза являются симметричная двухсторонняя лимфаденопатия с вовлечением паренхимы легкого или без такового. Тем не менее в 25–30 % случаев могут выявляться нехарактерные рентгенологические признаки, что приводит к трудностям в постановке правильного диагноза. К нетипичным формам саркоидоза органов дыхания относятся односторонняя или асимметричная лимфаденопатия, некроз или образование полостей, изменение проходимости бронхов, вовлечение плевры [5].

В настоящее время существует единый подход к диагностике саркоидоза — гистологическое подтверждение наличия специфического гранулематоз-

ного воспаления и выявление саркоидных гранулем в биопсийном материале [6, 7]. Для получения материала используется бронхоскопия с различными вариантами бронхобиопсий (трансбронхиальная щипцовая биопсия легкого, трансбронхиальная игольная биопсия, трансбронхиальная биопсия с ультразвукографическим контролем) [8]. При сочетании трансбронхиальной биопсии с одномоментной пункцией увеличенных лимфатических узлов средостения повышается чувствительность метода до 91 % [9].

При саркоидозе отмечается ряд характерных эндоскопических признаков — эктазия сосудов слизистой оболочки бронхов в виде расширенных, утолщенных, извитых сплетений, наличие бугорковых высыпаний различного диаметра на слизистой бронхов (т. н. саркоидные бляшки), ишемические пят-

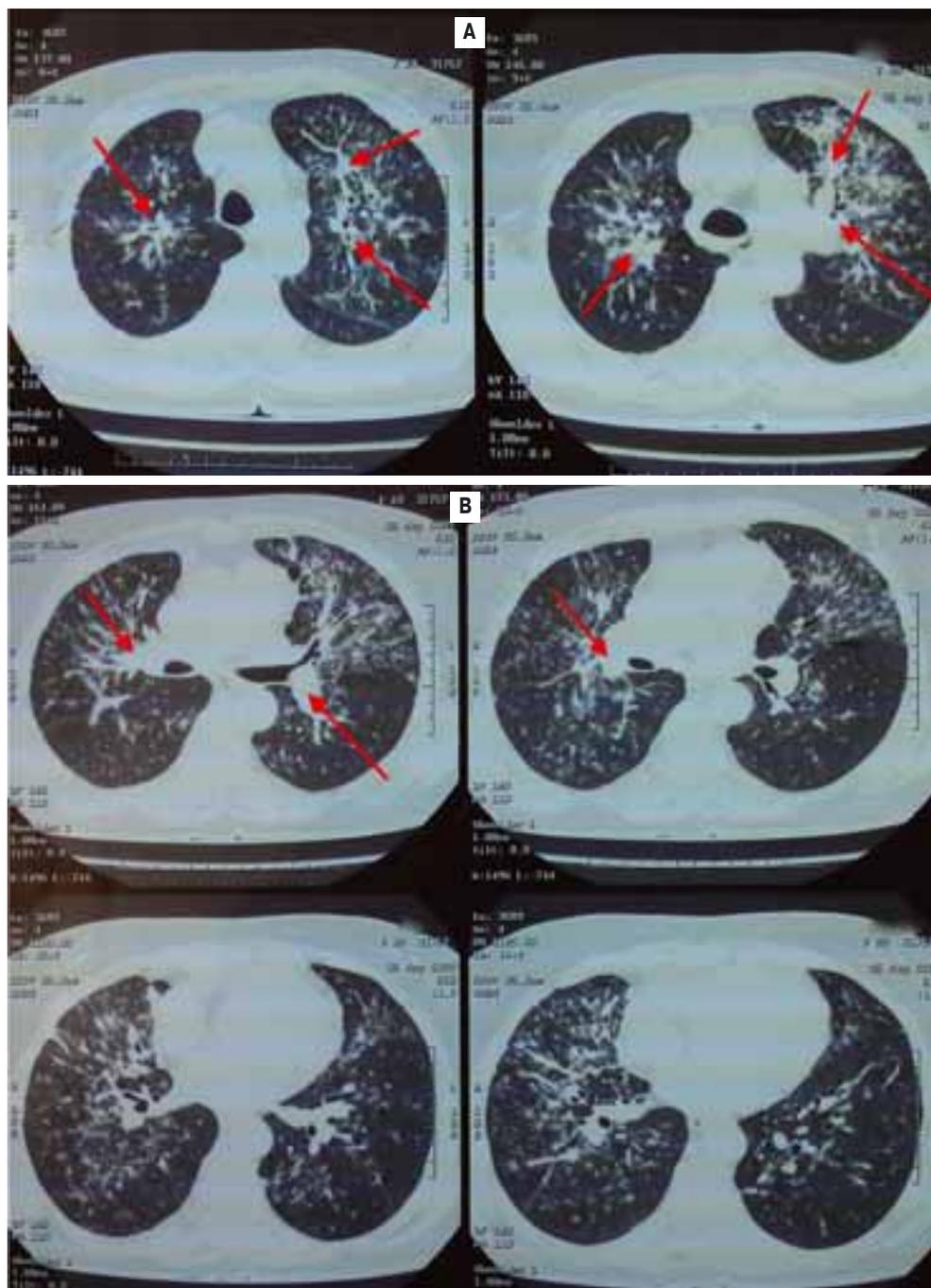


Рис. 1. Компьютерная томограмма пациентки К., 76 лет: А — множественные разнокалиберные очаговые тени в верхней доле левого легкого (в проекции С-3) размерами 25 × 15 мм, в средней доле правого легкого (в проекции С-5) — 9 × 12 мм, дополнительное образование 9 × 17 мм (в проекции С-5), в нижней доле правого легкого (в проекции С-7) — 14 × 26 мм; В — в обоих легких — конгломераты увеличенных лимфатических узлов 15 × 17 × 24 мм. В средостении — увеличенные лимфатические узлы до 15 мм

Figure 1. CT scans of the female patient K., 76 years old: A, multiple foci in S3 of the left upper lobe with the size of 25 mm × 15 mm, in S5 of the right middle lobe with the size of 9 mm × 12 mm, in S7 of the right lower lobe with the size of 14 mm × 26 mm and a neoplasm in S5 with the size of 9 mm × 17 mm. B, conglomerates of lymph nodes with the size of 15 mm × 17 mm × 24 mm in both the lungs; enlarged mediastinal lymph nodes with the size up to 15 mm

на – мелкие фиброзные уплотнения на слизистой в виде бледных пятен неправильной формы, без сосудистого рисунка по поверхности, свидетельствующие о фиброзировании сформировавшихся гранулем. В ряде случаев саркоидные гранулемы могут быть изолированными, имеют экзофитный характер роста и могут имитировать истинные «опухоли бронха», что может привести к частичной или полной обтурации просвета бронха [10, 11]. Возникает клинико-рентгенологическая картина гиповентиляции либо ателектаза части легкого. В этом случае можно говорить о псевдоопухолевой форме саркоидоза [12].

Приводится клиническое наблюдение.

Пациентка К. 76 лет в 2009 г. в рамках ежегодного обследования обратилась в Государственное бюджетное учреждение здравоохранения Московской области «Московский областной научно-исследовательский клинический институт им. М.Ф.Владимирского», где при контрольной рентгенографии органов грудной клетки заподозрен саркоидоз органов дыхания с поражением внутригрудных лимфатических узлов и легочной ткани. На момент осмотра пульмонологом предьявляла жалобы на сухой кашель. По данным клинического и лабораторного обследований – без существенных отклонений от нормы. Для морфологического подтверждения диагноза выполнена бронхоскопия с трансbronхиальной биопсией легочной ткани. В материале бронхио-биопсии – элементы саркоидной гранулемы. Проведено лечение системными глюкокортикостероидами в течение 6 мес. По данным контрольного компьютерно-томографического (КТ) исследования органов грудной клетки после завершения курса лечения в феврале 2010 г. в обоих легких визуализированы множественные разнокалиберные очаговые тени (рис. 1 А). В обоих корнях определялись конгломераты увеличенных лимфатических узлов (15 × 17 × 24 мм), вызывающих неравномерное сужение просветов бронхов. В средостении – увеличенные лимфатические узлы размерами до 15 мм (см. рис. 1 В).

При выполнении в 2011 и 2012 гг. контрольной мультиспиральной КТ (МСКТ) органов грудной клетки выявлена некоторая положительная динамика в виде регресса очагово-инфильтративных изменений в верхней доле правого легкого.

В июне 2014 г. состояние пациентки ухудшилось, отмечено появление осиплости голоса, першение в горле, потливость, пе-



Рис. 2. Фронтальная реконструкция нативных данных (толщина среза – 19 мм): выше устья среднедолевого бронха в просвете промежуточного бронха определяется образование
Figure 2. A frontal reconstruction of the native scans (the slice thickness is 19 mm): there is a neoplasm in the lumen of the intermediate bronchus above the middle lobe bronchus orifice



Рис. 3. Данные мультиспиральной компьютерной томографии. При виртуальной бронхоскопии по переднелатеральной стенке промежуточного бронха правого легкого определяется образование, суживающее его просвет
Figure 3. Multi spiral computed tomography. Virtual bronchoscopy: neoplasm of the anterior lateral wall of the right intermediate bronchus with narrowing the bronchial lumen

риодически приступообразный кашель. Поступила в Федеральное государственное бюджетное научное учреждение (ФГБНУ) «Центральный научно-исследовательский институт туберкулеза» для обследования и лечения. При поступлении по данным КТ органов грудной клетки отмечалась диффузная деформация легочного рисунка за счет фиброзной трансформации паренхиматозно-интерстициальных структур с наличием рассеянных разнокалиберных полиморфных теней гранулем и распространенных цилиндрических варикозных и кистозных бронхоэктазов. В просвете среднедолевого бронха визуализировалась дополнительная тень овальной формы, однородной структуры, с четкими контурами, тесно прилегающая к стенкам бронха (рис. 2).

На МСКТ виртуальной фибробронхоскопии по переднелатеральной стенке промежуточного бронха правого легкого определяется образование, суживающее его просвет (рис. 3).

В условиях стационара ФГБНУ «Центральный научно-исследовательский институт туберкулеза» выполнена бронхофиброскопия, при которой выявлено экзофитное образование в просвете промежуточного бронха с обтурацией просвета III степени и признаками вовлечения слизистой шпоры верхнедолевого бронха в процесс в виде ее расширения и пролиферативных изменений. Выполнена щипцовая биопсия, получен материал для цитологического и гистологического исследований. По данным цитологического исследования, на фоне гиперплазии клеток цилиндрического эпителия с наличием лимфоидной инфильтрации обнаружены скопления эпителиоидных клеток, местами формирующие эпителиоидно-клеточные гранулемы без некроза, а также единичные гранулемы в стадии фиброирования, клетки Пирогова–Лангханса и инородных тел.

По данным гистологического исследования выявлены фиброзный полип, покрытый респираторным эпителием, полиповидные кусочки рыхлой отечной фиброзной ткани с выраженной лимфоцитарной инфильтрацией стромы.

С подозрением на опухоль среднедолевого бронха на фоне саркоидоза внутригрудных лимфатических узлов и легких пациентка направлена в Федеральное государственное бюджетное учреждение «Российский научный центр рентгенодиагностики» Министерства здравоохранения Российской Федерации для определения лечебной тактики. При бронхоскопии, выполненной в указанном учреждении, в просвете промежуточного бронха по медиальной стенке выявлено экзофитное образование с гладкой блестящей поверхностью, исходящее из среднедолевого бронха. Выполнена биопсия. Экзофит подвижен, поверхность легко кровоточит при инструментальной пальпации (рис. 4). На медиальной стенке верхнедолевого и среднедолевого бронхов отмечено наличие втянутых пигментированных рубцов.

При контрольной МСКТ органов грудной клетки по сравнению с КТ-данными от апреля 2014 г. свежие очаговых и инфильтративных изменений не выявлено. В промежуточном бронхе – внутрисветное образование размером 11 мм, без границы,



Рис. 4. Экзофитное образование в просвете промежуточного бронха
Figure 4. Exophytic neoplasm in the intermediate bronchus

с утолщенной латеральной стенкой промежуточного бронха. Просвет остальных крупных бронхов не изменен.

По данным цитологического и гистологического исследований в материале бронхобиопсии наблюдается картина хронического гранулематозного воспаления бронхов. Признаков опухолевого процесса не выявлено. Установлен диагноз – саркоидная гранулема среднедолевого бронха. В связи с угрозой развития ателектаза для восстановления проходимости бронхов проведена эндоскопическая лазерная деструкция саркоидной гранулемы среднедолевого бронха правого легкого.

На протяжении многих лет лазерная деструкция успешно применяется в лечении новообразований дыхательных путей [13, 14]. В то же время публикации по использованию лазера при саркоидозе органов дыхания отсутствуют. Использован алюмоиттриевый лазер, легированный гольмием (Ho-YAG), или гольмиевый лазер. Длина волны 2,09 мкм.

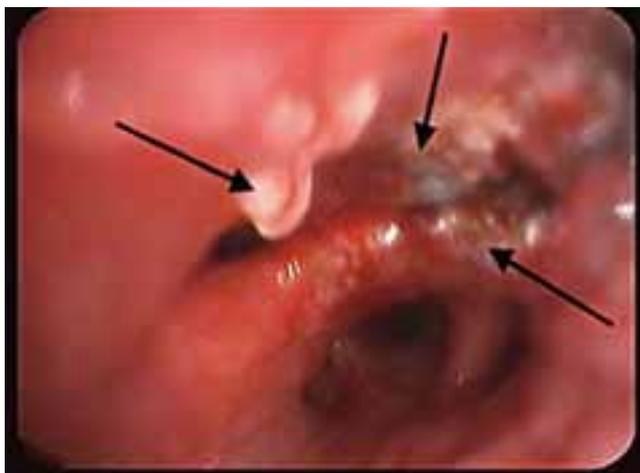


Рис. 5. Частичная реканализация просвета среднедолевого бронха с формированием коагуляционного некроза на слизистой шпоры
Figure 5. Partial recanalization of the middle lobe bronchus and coagulation necrosis of the spur mucosa



Рис. 6. Устье среднедолевого бронха деформировано, щелевидно сужено за счет рубцовых изменений и наличия втянутого пигментированного рубца по медиальной стенке
Figure 6. The middle lobe bronchial orifice is deformed and is slit-like due to fibrotic lesion and an invaginated pigmented scar on the medial wall

Эффект коагуляции возникает при воздействии на поверхность ткани с энергией 3–7 Дж / см² [15].

На 1-м этапе произведена лазерная абляция $\frac{2}{3}$ объема с частичной реканализацией просвета среднедолевого бронха, формированием коагуляционного некроза на слизистой шпоры и по всей окружности устья среднедолевого бронха (рис. 5). Признаков кровотечения не выявлено. Параметры использования лазера: энергия импульса – 0,8 Дж, частота повторений импульсов – 14 Гц. Без осложнений.

На 2-м этапе (через 3 суток) произведено эндоскопическое удаление оставшейся ткани гранулемы в просвете среднедолевого бронха правого легкого.

При контрольной бронхоскопии (через 14 дней) после вмешательства установлено следующее: устье среднедолевого бронха деформировано, щелевидно сужено за счет рубцовых изменений и наличия втянутого пигментированного рубца по медиальной стенке, сегментарные бронхи Б-4 и Б-5 просматриваются, последние не изменены. Слизистая промежуточного, среднедолевого бронхов – с наличием единичных мелкобугристых высыпаний по типу гранул (рис. 6).

В связи с активностью гранулематозного процесса рекомендовано продолжить терапию системными глюкокортикостероидами (метипред 16 мг в течение 3 мес.).

Заключение

Таким образом, экзофитное образование в бронхе, имитирующее опухоль – крайне редкое наблюдение при саркоидозе органов дыхания. На начальном этапе обследования у больной с саркоидозом легких безусловно логичным предположением явилась опухоль бронха. Однако при повторной биопсии опухолевый характер заболевания исключен. Использование гольмиевого лазера для реканализации бронхов позволило предотвратить развитие осложнений, связанных с нарушением вентиляции легких. В сочетании с гормонотерапией в короткие сроки удалось добиться регрессии заболевания.

Конфликт интересов

Конфликт интересов отсутствует.

Conflict of interest

The authors declare no conflict of interest.

Литература

- Baughman R.P., Field S., Costabel U. et al. Sarcoidosis in America. Analysis Based on Health Care Use. *Ann. Am. Thorac. Soc.* 2016; 13 (8): 1244–1252. DOI: 10.1513/AnnalsATS.201511-760OC.
- Baughman R.P., Culver D.A., Judson M.A. A concise review of pulmonary sarcoidosis. *Am. J. Respir. Crit. Care Med.* 2011; 183 (5): 573–581. DOI: 10.1164/rccm.201006-0865CI.
- Чучалин А.Г., ред. Пульмонология: национальное руководство. М.: ГЭОТАР-Медиа; 2009.
- Чучалин А.Г., ред. Пульмонология: клинические рекомендации. М.: ГЭОТАР-Медиа; 2009.
- Li Z., Li X., Song Z. et al. Sarcoidosis misdiagnosed as malignant tumors: a case report. *World J. Surg. Oncol.* 2015; 13: 333. DOI: 10.1186/s12957-015-0748-6.
- Mukhopadhyay S., Gal A.A. Granulomatous lung disease: an approach to the differential diagnosis. *Arch. Pathol. Lab. Med.* 2010; 134: 667–690. DOI: 10.1043/1543-2165-134.5.667.
- Iannuzzi M.C., Rybicki B.A., Teirstein A.S. Sarcoidosis. *N. Engl. J. Med.* 2007; 357 (21): 2153–2165. DOI: 10.1056/NEJMra071714.

8. Филиппов В.П., Черниченко Н.В. Бронхоскопия при заболеваниях легких. М.: Бином; 2014.
9. Gupta D., Dadhwal D.S., Agarwal R. et al. Endobronchial ultrasound-guided transbronchial needle aspiration vs conventional transbronchial needle aspiration in the diagnosis of sarcoidosis. *Chest*. 2014; 146 (3): 547–556. DOI: 10.1378/chest.13-2339.
10. von Bartheld M.B., Dekkers O.M., Szlubowski A. et al. Endosonography vs conventional bronchoscopy for the diagnosis of sarcoidosis: the GRANULOMA randomized clinical trial. *JAMA*. 2013; 309 (23): 2457–2464. DOI: 10.1001/jama.2013.5823.
11. Sonntag P.D., Hinshaw J.L., Lubner M.G. et al. Thermal ablation of lung tumors. *Surg. Oncol. Clin. N. Am.* 2011; 20 (2): 369–387. DOI: 10.1016/j.soc.2010.11.008.
12. Msaad S., Ketata W., Abid N. et al. Pseudotumor phenotype of sarcoidosis: about two cases. *Rev. Mal. Respir.* 2013; 30 (9): 794–800. DOI: 10.1016/j.rmr.2013.04.017.
13. Schneider T., Heussel C.P., Herth F.J.F., Dienemann H. Thermal ablation of malignant lung tumors. *Dtsch. Arztebl. Int.* 2013; 110 (22): 394–400. DOI: 10.3238/arztebl.2013.0394.
14. Khemasuwan D., Mehta A.C., Wang K.P. Past, present, and future of endobronchial laser photoresection. *J. Thorac. Dis.* 2015; 7 (Suppl. 4): S380–S388. DOI: 10.3978/j.issn.2072-1439.2015.12.55.
15. Грачев С.В., Джибладзе Т.А., Загородний Н.В. Гольмиевый лазер в медицине. М.: Триада-Х; 2003.
4. Chuchalin A.G., ed. Pulmonology: Clinical Guidelines. Moscow: GEOTAR-Media; 2009 (in Russian).
5. Li Z., Li X., Song Z. et al. Sarcoidosis misdiagnosed as malignant tumors: a case report. *World J. Surg. Oncol.* 2015; 13: 333. DOI: 10.1186/s12957-015-0748-6.
6. Mukhopadhyay S., Gal A.A. Granulomatous lung disease: an approach to the differential diagnosis. *Arch. Pathol. Lab. Med.* 2010; 134: 667–690. DOI: 10.1043/1543-2165-134.5.667.
7. Iannuzzi M.C., Rybicki B.A., Teirstein A.S. Sarcoidosis. *N. Engl. J. Med.* 2007; 357 (21): 2153–2165. DOI: 10.1056/NEJMra071714.
8. Филиппов В.П. and Черниченко Н.В. Bronchoscopy in Lung Diseases. Moscow: Binom; 2014 (in Russian).
9. Gupta D., Dadhwal D.S., Agarwal R. et al. Endobronchial ultrasound-guided transbronchial needle aspiration vs conventional transbronchial needle aspiration in the diagnosis of sarcoidosis. *Chest*. 2014; 146 (3): 547–556. DOI: 10.1378/chest.13-2339.
10. von Bartheld M.B., Dekkers O.M., Szlubowski A. et al. Endosonography vs conventional bronchoscopy for the diagnosis of sarcoidosis: the GRANULOMA randomized clinical trial. *JAMA*. 2013; 309 (23): 2457–2464. DOI: 10.1001/jama.2013.5823.
11. Sonntag P.D., Hinshaw J.L., Lubner M.G. et al. Thermal ablation of lung tumors. *Surg. Oncol. Clin. N. Am.* 2011; 20 (2): 369–387. DOI: 10.1016/j.soc.2010.11.008.
12. Msaad S., Ketata W., Abid N. et al. Pseudotumor phenotype of sarcoidosis: about two cases. *Rev. Mal. Respir.* 2013; 30 (9): 794–800. DOI: 10.1016/j.rmr.2013.04.017.
13. Schneider T., Heussel C.P., Herth F.J.F., Dienemann H. Thermal ablation of malignant lung tumors. *Dtsch. Arztebl. Int.* 2013; 110 (22): 394–400. DOI: 10.3238/arztebl.2013.0394.
14. Khemasuwan D., Mehta A.C., Wang K.P. Past, present, and future of endobronchial laser photoresection. *J. Thorac. Dis.* 2015; 7 (Suppl. 4): S380–S388. DOI: 10.3978/j.issn.2072-1439.2015.12.55.
15. Grachev S.V., Dzhibladze T.A., and Zagorodniy N.V. Holmium Laser in Medicine. Moscow: Triada-X; 2003 (in Russian).

Поступила 07.11.16

References

1. Baughman R.P., Field S., Costabel U. et al. Sarcoidosis in America. Analysis Based on Health Care Use. *Ann. Am. Thorac. Soc.* 2016; 13 (8): 1244–1252. DOI: 10.1513/AnnalsATS.201511-760OC.
2. Baughman R.P., Culver D.A., Judson M.A. A concise review of pulmonary sarcoidosis. *Am. J. Respir. Crit. Care Med.* 2011; 183 (5): 573–581. DOI: 10.1164/rccm.201006-0865CI.
3. Chuchalin A.G., ed. Pulmonology: National Handbook. Moscow: GEOTAR-Media; 2009 (in Russian).

Received November 07, 2016