

# Внутридолевая бронхолегочная секвестрация: пример позднего дебюта редкой врожденной патологии

М.А.Третьяков, А.Ю.Третьяков ✉

Федеральное государственное автономное образовательное учреждение высшего образования «Белгородский государственный национальный исследовательский университет» Министерства науки и высшего образования Российской Федерации: 308015, Россия, Белгород, ул. Победы, 85

## Резюме

Бронхолегочная секвестрация (БЛС) относится к редким врожденным порокам развития легких с наличием невентилируемого диспластического фрагмента паренхимы, отделенного от основного бронхиального дерева с системным кровоснабжением через aberrantные артерии, венозным оттоком в системное венозное русло или легочные вены, имеющего общую с остальным легким (для внутридолевой (внтДБЛС)), либо самостоятельную (для внедолевой (внеДБЛС)) висцеральную плевру. **Целью** исследования явилось описание необычного позднего дебюта правосторонней внтДБЛС, характеризующейся псевдопневмоническим вариантом течения у пациентки с сопутствующей патологией грудного отдела позвоночника и диафрагмы. Обсуждаются также вопросы формирования, манифестации, диагностики, дифференциальной диагностики, осложнений и лечения внтДБЛС и ее сочетания с иными аномалиями развития. **Заключение.** БЛС необходимо рассматривать в ситуациях необычного течения пульмонологической патологии, особенно в случае ее локализации в базальных сегментах левого (чаще) или правого (реже) легкого, характеризующейся аномальным кровоснабжением и другими пороками развития.

**Ключевые слова:** бронхолегочная секвестрация; врожденный порок развития легких.

**Конфликт интересов.** Конфликт интересов авторами не заявлен.

**Финансирование.** Финансовая поддержка публикации отсутствовала.

**Этическая экспертиза.** Исследование проводилось в соответствии с принципами Хельсинкской декларации. Пациент подписал добровольное информированное согласие на публикацию информации и изображений в научно-практическом журнале «Пульмонология».

**Благодарности.** Авторы выражают искреннюю признательность ассистенту кафедры госпитальной терапии Федерального государственного автономного образовательного учреждения высшего образования «Белгородский государственный национальный исследовательский университет» Министерства науки и высшего образования Российской Федерации врачу-пульмонологу Областного государственного бюджетного учреждения здравоохранения «Белгородская областная клиническая больница Святителя Иоасафа» (Белгород) *О.В.Ермилову* и ассистенту кафедры анатомии и гистологии человека Федерального государственного автономного образовательного учреждения высшего образования «Белгородский государственный национальный исследовательский университет» Министерства науки и высшего образования Российской Федерации, заведующему отделением онкоморфологии Областного государственного бюджетного учреждения здравоохранения «Белгородское патологоанатомическое бюро» *Р.Р.Хабидуллину* за предоставленные материалы, необходимые для написания данной статьи.

© Третьяков М.А. и соавт., 2023

Для цитирования: Третьяков М.А., Третьяков А.Ю. Внутридолевая бронхолегочная секвестрация: пример позднего дебюта редкой врожденной патологии. *Пульмонология*. 2023; 33 (5): 697–702. DOI: 10.18093/0869-0189-2023-33-5-697-702

# Intralobar bronchopulmonary sequestration: an example of the late onset of this rare congenital pathology

Mikhail A. Tretyakov, Andrey Yu. Tretyakov ✉

Federal State Autonomous Educational Institution of Higher Education “Belgorod State National Research University”, Ministry of Science and Higher Education of the Russian Federation: ul. Pobedy 85, Belgorod, 308015, Russia

## Abstract

Bronchopulmonary sequestration (BPS) refers to a rare congenital lung malformation with a nonventilated dysplastic fragment of parenchyma separated from the main bronchial tree. This segment has a systemic blood supply through aberrant arteries and venous outflow into the systemic venous bed or pulmonary veins and has a common with the rest of the lung (intralobar BPS) or an independent (extralobar BPS) visceral pleura. **Purpose** of the study is to describe an unusual late onset of right-sided intralobar BPS characterized by a pseudopneumonic course in a patient with concomitant anomalies of the thoracic spine and diaphragm; to discuss the issues of formation, manifestation, diagnosis, differential diagnosis, complications, and treatment of intralobar BPS, and to consider its combination with other developmental anomalies. **Conclusion.** BLS should be considered in patients with an unusual course of pulmonary anomalies, especially localized in the basal segments of the left (more common) or right (less common) lung and characterized by abnormal blood supply and other malformations.

**Key words:** bronchopulmonary sequestration, congenital lung malformation.

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

**Funding.** The publication had no financial support.

**Ethical expertise.** The study was conducted in accordance with the principles of the Declaration of Helsinki. The patient signed voluntary informed consent for the publication of information and images in the scientific and practical journal “Pulmonology”.

**Acknowledgments.** The authors express their sincere gratitude to *O.V.Ermilov*, assistant of the Department of Hospital Therapy of the Federal State Autonomous Educational Institution of Higher Education “Belgorod State National Research University”, Ministry of Science and Higher Education of the Russian Federation, pulmonologist of the Regional State Budgetary Healthcare Institution “Belgorod Regional Clinical Hospital of St. Joasaph” (Belgorod), and *R.R.Khabibullin*, assistant of the Department of Human Anatomy and Histology of the Federal State Autonomous

Educational Institution of Higher Education “Belgorod State National Research University”, Ministry of Science and Higher Education of the Russian Federation, Head of the Department of Oncomorphology of the Regional State Budgetary Institution of Public Health “Belgorod Pathological Anatomical Bureau”, for providing the materials to write this article.

© Tretyakov M.A. et al., 2023

For citation: Tretyakov M.A., Tretyakov A.Yu. Intralobar bronchopulmonary sequestration: an example of the late onset of this rare congenital pathology. *Pul'monologiya*. 2023; 33 (5): 697–702 (in Russian). DOI: 10.18093/0869-0189-2023-33-5-697-702

Бронхолегочная секвестрация (БЛС) является врожденным пороком развития легких (ВПРЛ), при котором присутствует дополнительный, не участвующий в газообмене аномальный участок ткани, отделенный от основного бронхиального дерева и снабжаемый кровью через одну или несколько аберрантных артерий большого круга с венозным оттоком в системное венозное русло (полые вены), либо сохраняющий его в легочные вены; от того, имеет ли такой фрагмент общую висцеральную плевру с основным легким или наделен собственной, зависит обозначение клинического варианта БЛС – внутридолевая (внтДБЛС) или внедолевая (внеДБЛС). Среди других ВПРЛ БЛС составляет всего 0,15–6,4 % [1].

Являясь ВПРЛ, БЛС часто проявляется уже в детском возрасте, нередко сочетаясь с дефектами развития соседних анатомических структур. Общность плевры и непосредственный контакт диспластического участка с нормальной легочной тканью при внтДБЛС предполагает возможность не только гематогенного, но воздушного инфицирования секвестра коллатеральным вентиляционным потоком с развитием рецидивирующей инфекционно-воспалительной реакции. Вот почему > 50 % случаев такой патологии диагностируется в первое десятилетие жизни, поздний дебют менее характерен [2]. В качестве демонстрации последнего представлено следующее клиническое наблюдение.

### Клиническое наблюдение

Пациентка М. 54 лет поступила в отделение с жалобами на одышку при физической нагрузке, кашель с желтой мокротой. Считает себя больной около 1 года, периодически отмечалось повышение температуры тела до 38 °С, беспокоили кашель с мокротой и одышка. По данным рентгенографии и компьютерной томографии (КТ) органов грудной клетки (ОГК) и магнитно-резонансной томографии (МРТ) обнаружены зона инфильтрации легочной ткани в нижней доле справа с жидкостными включениями и грыжа пояснично-реберного треугольника справа (рис. 1).

Не курит, употребление алкоголя отрицает; экстирпация матки 6 лет назад по поводу злокачественного новообразования; страдает гипертонической болезнью; врожденный правосторонний кифосколиоз грудного отдела 3-й степени; варикозная болезнь вен нижних конечностей. При поступлении состояние удовлетворительное, стабильное. Телосложение нормостеническое, сознание ясное, кожные покровы и видимые слизистые – без особенностей. Дыхание через нос свободное. Частота дыхательных движений – 18 в минуту. Сатурация кислородом – 97 %. Кифосколиотическая деформация грудной клетки, в акте дыхания обе половины участвуют неравномерно за счет деформации, пальпация грудной клетки безболезненная, легочный перкуторный звук, дыхание везикулярное, в нижних отделах справа по задней поверхности дыхание ослаблено, выслу-

шиваются сухие низкотональные хрипы в нижних отделах с обеих сторон. Область сердца и крупных сосудов не изменена, тоны приглушенные, ритмичные, пульс – 70 в минуту, артериальное давление – 130 / 80 мм рт. ст. Живот участвует в акте дыхания, мягкий, безболезненный, печень и селезенка не пальпируются. Стул, диурез – в норме. Область почек при пальпации – безболезненная.

Результаты общего анализа крови:

- скорость оседания эритроцитов – 7 мм / ч;
- гемоглобин – 148 г / л;
- эритроциты –  $5,1 \times 10^{12}$  / л;

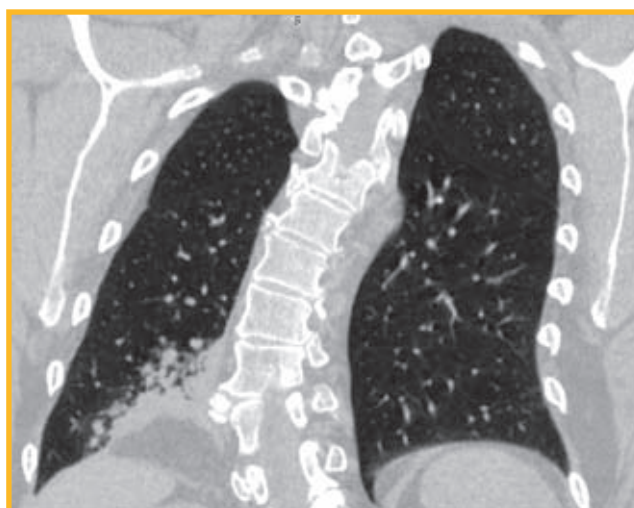
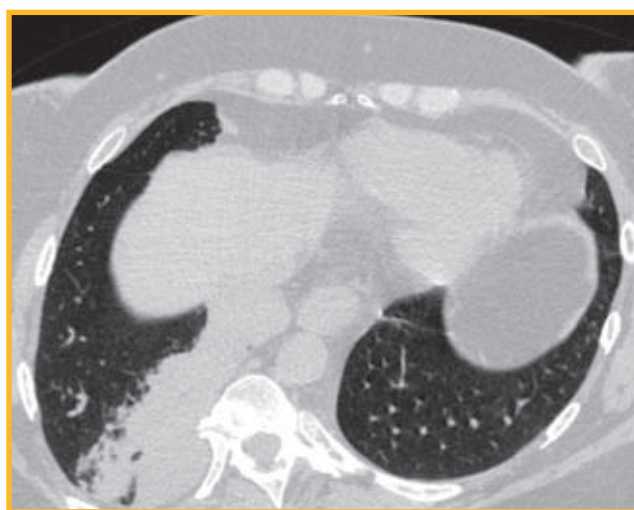


Рис 1. Компьютерная томограмма легких (аксиальная и фронтальная проекции): зона инфильтрации легочной ткани без бронхограмм неоднородной структуры с жидкостными включениями в S7 и S10 справа, грыжа пояснично-реберного треугольника справа, кифосколиотическая деформация грудной клетки

Figure 1. Computed tomography of the lungs (axial and frontal views): zone of infiltration in lower lobe of right lung without bronchograms of heterogeneous structure with liquid inclusions in S7 and S10, hernia of the lumbar-costal triangle on the right, kyphoscoliotic deformation of the chest



- гематокрит – 0,5;
- тромбоциты –  $363,0 \times 10^9 / \text{л}$ ;
- лейкоциты –  $14,6 \times 10^9 / \text{л}$ ;
- нейтрофилы – 86,0 %;
- лимфоциты – 9,3 %;
- моноциты – 4,3 %;
- эозинофилы – 0,1 %;
- базофилы – 0,3 %).

Результаты биохимического анализа крови:

- общий белок – 80,8 г / л;
- мочевина – 7,13 ммоль / л;
- креатинин – 95 мкмоль / л;
- глюкоза – 6,4 ммоль / л;
- аспаратаминотрансфераза – 17,3 ед. / л;
- аланинаминотрансфераза – 26,5 ед. / л;
- С-реактивный белок – 3,5 мг / л;
- IgE общий – 175 МЕ / мл;
- фибриноген – 4,25 г / л.

При ультразвуковом исследовании ОГК выявлена свободная жидкость в правой плевральной полости (толщина полоски – до 10 мм), а также уплотнение аорты, створок аортального клапана, концентрическая гипертрофия миокарда левого желудочка, нарушение диастолической функции левого желудочка 1-го типа, незначительная митральная регургитация, увеличение полости левого предсердия.

По данным бронхоскопии органической патологии не обнаружено, результаты цитологического исследования полученного материала свидетельствуют о наличии цилиндрических и базальных клеток бронхиального эпителия с пролиферацией и дегенеративными изменениями без элементов злокачественной метаплазии и кислотоустойчивых микобактерий.

Проведена антибактериальная терапия комбинацией цефепима 4 г в сутки и левофлоксацина 500 мг в сутки в течение 10 дней, на фоне которой отмечены нормализация температуры, снижение уровня лейкоцитов в крови до  $7,9 \times 10^9 / \text{л}$ . Однако инфильтративные изменения в паренхиме правого легкого сохранялись. Выполнена ангиопульмонография, по результатам которой установлено, что от дистальных отделов грудной аорты к указанному участку паренхимы отходит дополнительная артерия (рис. 2).

Выполнена нижняя лобэктомия справа. При осмотре выявлено незарращение главной междолевой щели, в S9–S10 пальпируется плотное образование 5–7 см в диаметре, легочная связка уплотнена, в ней пальпируется кровеносный сосуд (артерия) с венозным оттоком в легочную вену. Проведено гистологическое исследование полученного операционного материала (рис. 3).

Заключительный клинический диагноз: внтДБЛС нижней доли правого легкого, кистозно-абсцедирующая форма с формированием хронического абсцесса.

## Обсуждение

БЛС является редким заболеванием: в списке других ВПРЛ занимает одно из последних мест, составляя лишь 0,15–6,4 %. Основу болезни составляет нарушение морфогенеза в области примитивной передней кишки во время формирования в ее вентральной части первичной закладки легкого («почки»); когда размер эмбриона составляет 4 мм, данный зачаток легкого делится на 2 первичных бронха с последующим «почкованием» ткани для 5 легочных долей. Далее рост легких происходит в вентральном и каудальном направлениях, теряя при этом связь с аортой, а ле-



Рис. 2. Ангиопульмонография (3D-реконструкция): от дистальных отделов грудной аорты к указанному ранее участку паренхимы правого легкого отходит дополнительная артерия до 5 мм в диаметре (указано стрелкой), анатомически правильно в нем разветвляющаяся

Figure 2. Pulmonary angiogram (3D-reconstruction): an additional artery (indicated by the arrow) up to 5 mm in diameter departs from the distal part of the thoracic aorta to the previously indicated section of the parenchyma of the right lung and branches in it with normal branching anatomy

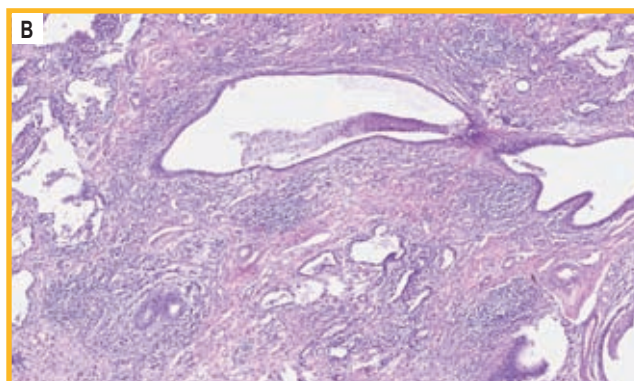
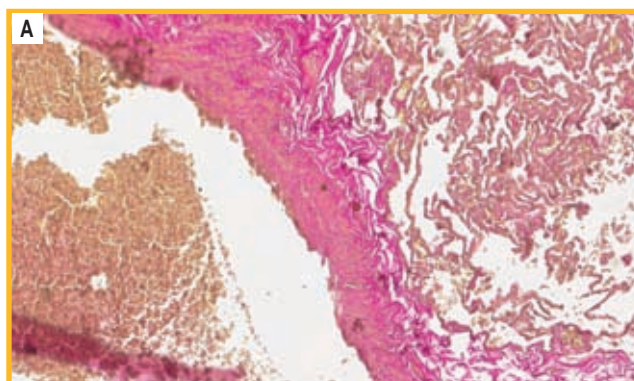


Рис. 3. Гистологическая картина биопсийного материала: А – стенка мышечно-эластической артерии (окраска по Ван Гизону;  $\times 100$ ); В – терминальная бронхиола неправильной формы, отсутствие альвеол, отсутствие микрокист в фиброзной ткани (окраска гематоксилином и эозином;  $\times 50$ )

Figure 3. Histologic analysis of the biopsy material: A, wall of the muscular-elastic artery; Van Gieson staining;  $\times 100$ ; B, irregular terminal bronchiole, absence of alveoli, microcysts in fibrous tissue (staining with hematoxylin and eosin;  $\times 50$ )

гочные артерии и вены создаются независимо вокруг развивающегося легкого. После этого осуществляется повторное соединение с аортой и образование бронхиального артериального кровообращения. Наличие дополнительного зачатка и сохранение в течение всего раннего эмбрионального периода его связи с растущей в каудальном направлении аортой определяет развитие легочного секвестра, лишённого вследствие этого бронхиальных артерий [2]. Секвестр не только кровоснабжается непосредственно из аорты (92,6 % – при внтДБЛС и 77,8 % – при внеДБЛС) через aberrантные артерии, но и мигрирует по мере ее роста преимущественно в базальные отделы. Так, 97,8 % случаев внтДБЛС и 77,4 % внеДБЛС локализируются рядом с нижней долей, а для внеДБЛС свойственна еще поддиафрагмальная (1,5 %) и абдоминальная (8,2 %) локализации [3]. Сама aberrантная артерия достаточно крупная (диаметр – 6–7 мм), относится к классу сосудов эластического типа, располагается в легочной связке и отличается значительной неустойчивостью к атеросклеротическим изменениям (в 15–20 % БЛС таких артерий несколько) [4].

Общностью морфогенеза секвестра и аорты объясняется причина относительного преобладания левосторонних форм патологии как для внтДБЛС (57,3 %), так и (особенно) для внеДБЛС (78,9 %) [3]. Наоборот, у пациентки наблюдалась правосторонняя внтДБЛС, при которой требовалось исключение другой врожденной патологии правого легкого – синдрома «ятагана».

При совпадении сроков закладки (развития) нормальной и дополнительной ткани секвестр покрывается общей висцеральной плеврой, становясь внутридолевым, когда же такой процесс не синхронизирован, листки висцеральной плевры независимы и секвестр формируется как внедолевой. Редким вариантом секвестрации является сочетание сразу обеих форм – внтДБЛС и внеДБЛС, указывая на возможность двухфазной последовательности почкования аномальных закладок на различных этапах раннего эмбриогенеза [3, 5].

С учетом существования т. н. гибридных вариантов ВПРЛ, где БЛС примерно у 13 % больных сочетается с другой патологией – врожденным пороком развития легочных дыхательных путей (*Congenital Pulmonary Airway Malformations* – СРАМ), для которой установлен факт ненормальной экспрессии гомеостатических генов (*Hoxb-5*), генов факторов транскрипции (*Nkx2*, *Yul* и др.), факторов роста (*PDGF-B*), ответственных за органогенез, можно предположить причастность этой дисфункции и к появлению секвестрации [6, 7]. При этом БЛС появляется спорадически, не относится к наследственной патологии, семейная история болезни здесь отсутствует.

Приблизительно каждый 10-й случай внтДБЛС сочетается с иными пороками развития. В представленном наблюдении у пациентки отмечен правосторонний кифосколиоз грудного отдела позвоночника с ипсилатеральной диафрагмальной грыжей. Такие дефекты относятся к наиболее частым дисэмбриогенетическим дополнениям внтДБЛС, занимая для

патологии осевого скелета 1-е место списка сопутствующих аномалий, тогда как нарушения диафрагмы значатся третьими по встречаемости после ситуаций пищеводно-бронхиальных дивертикулов, которыми сопровождается секвестрация [3].

При коллатеральной аэрогенной и гематогенной колонизации инфекционными агентами неполноценной ткани секвестра, особенно внтДБЛС, повышается риск рецидивирующего воспаления, причем более чем у 50 % больных эпизоды респираторной инфекции отмечаются уже в раннем детском возрасте. Гораздо реже, как в представленном клиническом наблюдении, такое клиническое начало болезни регистрируется у лиц старше 50 лет [8, 9].

Инфекционно-воспалительная реакция в диспластическом очаге и далее – в парасеквестральной паренхиме и плевре бывает обусловлена не только респираторной негоспитальной флорой, но и представителями группы неферментирующих бактерий (*Pseudomonas aeruginosa*), плесневыми грибами (*Aspergillus spp.*) и микобактериями [10, 11].

Физикальные симптомы такого процесса здесь мало отличаются от локального уплотнения легочной ткани или реакции плевры иной природы, только представленность хрипов и количества мокроты в ситуации незначительного вовлечения паренхимы, окружающей секвестр, будет гораздо меньшей, чем при обычной пневмонии, а разрешение инфильтрата на фоне антимикробной терапии и клинического улучшения – всегда неполным. Отдельно следует отметить 2 причины появления продуктивного кашля и кровохарканья в момент рецидива при внтДБЛС:

- парасеквестральное вовлечение анатомически нормальной бронхолегочной ткани, включая формирование тут бронхоэктазов;
- инфекционно-воспалительная деструкция ткани секвестра и лизис стенки близлежащего правильно сформированного бронха.

В случае внтДБЛС (при наличии хронического воспаления) по результатам бронхографического теста в той или иной мере продемонстрировано в 30 % случаев поступление контраста в аномальную зону, в 14 % – непосредственная связь секвестра с основным бронхиальным деревом [3]. Абсцедирование секвестра с вовлечением в некротический процесс aberrантной артерии по факту системного уровня артериального давления в ней чревато жизнеугрожающим легочным кровотечением или гемотораксом. Кроме пневмониеподобной картины и гемоторакса, третьей клинической формой внтДБЛС является псевдоопухольный вариант. Особым, хотя и более редким проявлением БЛС может быть сердечная недостаточность, которая является итогом хронической перегрузки давлением правого или левого желудочков при типе шунтирования «аорта-абerrантная артерия-венозный дренаж секвестра в полую вену» (лево-правый сброс) или «аорта-абerrантная артерия-венозный дренаж секвестра в легочную вену» (лево-левый сброс) соответственно.

Диагностика БЛС основана на соблюдении следующих 3 условий: обнаружение aberrантной артерии



(радиологическим или ультразвуковым методом), связанного с ней аномального (независимого от остального бронхиального дерева) фрагментом легкого, преимущественно расположенного в заднебазальных отделах нижней доли, а также исключение иной ВПРЛ с ненормальным системным кровоснабжением. В случае КТ- или МРТ-визуализации сосуда дополнительной ангиографической оценки обычно больше не требуется [12]. Сам секвестр при втДБЛС на КТ может быть представлен узлом, консолидацией (гомогенной или, если есть кисты, гетерогенной), либо зоной повышенной прозрачности. Формирование последней картины обусловлено воздушными ловушками, когда коллатеральный поток с привнесением газа в секвестр не находит выхода из-за отсутствия бронхиального сообщения. Обычная рентгенография ОГК имеет меньшую диагностическую ценность, помимо неспецифической картины втДБЛС в виде участка консолидации, узла или кистозного / мультикистозного поражения, лишь иногда можно заметить артерию с формой дополнительного трубчатого образования, отходящего от аорты [12].

По результатам гистологического исследования, как и представленного клинического наблюдения, при втДБЛС продемонстрирована картина хронического воспаления (80 %), аномально структурированных бронхов (45 %), фиброза (27 %), а также зон ненормальных альвеол (8 %) [3].

При диагностике БЛС следует исключать иную похожую патологию – врожденный венолобарный синдром (или синдром Халаша, синдром «ятагана» и др.). Для этого синдрома свойственна вариабельная гипоплазия (с двухдолевым строением) всего правого легкого, его аномальное системное кровоснабжение с полным или частичным венозным оттоком в нижнюю полую вену, а также декстрапозиция сердца [13]. Помимо венолобарного синдрома, дифференциальный диагноз при БЛС строится по правилу исключения традиционной патологии – пневмонии, нагноительных заболеваний легких, первичной или метастатической неоплазии.

Основным правилом терапии втДБЛС у взрослых является хирургическое лечение с резекцией ткани секвестра или нижней доли. Целью такой тактики является снижение вероятности жизнеугрожающих осложнений БЛС (массивного кровотечения, пневмоторакса и т. п.). В педиатрической практике, наоборот, допустима выжидательная программа и консервативное лечение бронхолегочной инфекции [6, 9, 10, 14].

## Заключение

В силу чрезвычайно малой распространенности и отсутствия специфики клинических проявлений, особенно при позднем дебюте, БЛС представляет значительные диагностические трудности, скрываясь под маской пневмонии, паразитарных или нагноительных заболеваний легких, фтизиатрической и онкологической патологии. Между тем при помощи существующих визуализационных технологий возможно выявить диспластический участок паренхимы с ненормальным

венозным оттоком и / или кровоснабжением посредством аберрантной артерии большого круга кровообращения, часто локализующийся в базальных отделах легких и сочетающийся с другими пороками развития.

Таким образом, особенностью представленного наблюдения втДБЛС у пациентки старше 50 лет являлось его длительное бессимптомное течение, псевдопневмоническое клиническое начало в комбинации с врожденным кифосколиозом грудного отдела позвоночника и дефектом диафрагмы.

## Литература

1. Nadeem M., Elnazir B., Grealley P. Congenita pulmonary malformation in children. *Scientifica*. 2012; 2012: 209896. DOI: 10.6064/2012/209896.
2. Sade R.M., Clouse M., Ellis F.H. Jr. The spectrum of pulmonary sequestration. *Ann. Thorac. Surg.* 1974; 18 (6): 644–658. DOI: 10.1016/s0003-4975(10)64417-7.
3. Savic B., Birtel F.J., Tholen W. et al. Lung sequestration: report of seven cases and review of 540 published cases. *Thorax*. 1979; 34 (1): 96–101. DOI: 10.1136/thx.34.1.96.
4. Ellis K. Fleischner lecture: Developmental abnormalities in the systemic blood supply to the lungs. *AJR Am. J. Roentgenol.* 1991; 156 (4): 669–679. DOI: 10.2214/ajr.156.4.2003427.
5. Wei Y., Li F. Pulmonary sequestration: a retrospective analysis of 2625 cases in China. *Eur. J. Cardiothorac. Surg.* 2011; 40 (1): e39–42. DOI: 10.1016/j.ejcts.2011.01.080.
6. Cook J., Chitty L.S., De Coppi P. et al. The natural history of prenatally diagnosed congenital cystic lung lesions: long-term follow-up of 119 cases. *Arch. Dis. Childhood*. 2017; 102 (9): 798–803. DOI: 10.1136/archdischild-2016-311233.
7. Leblanc C., Baron M., Desselas E. et al. Congenital pulmonary airway malformations: state-of-the-art review for pediatrician's use. *Eur. J. Pediatrics*. 2017; 176 (12): 1559–1571. DOI: 10.1007/s00431-017-3032-7.
8. Rosales B.C., Estévez A.D.M., Campañá V.R. Intralobar pulmonary sequestration in adult older than 50. *Revista Cubana de Medicina*. 2014; 53 (1): 97–103. Available at: <https://www.medigraphic.com/cgi-bin/new/resumenI.cgi?IDARTICULO=51194>
9. Alsumrain M., Ryu J.H. Pulmonary sequestration in adults: a retrospective review of resected and unresected cases. *BMC Pulm. Med.* 2018; 18 (1): 97. DOI: 10.1186/s12890-018-0663-z.
10. Sun X., Xiao Y. Pulmonary sequestration in adult patients: a retrospective study. *Eur. J. Cardiothorac. Surg.* 2015; 48 (2): 279–282. DOI: 10.1093/ejcts/ezu397.
11. Zaccarini D.J., El-Zammar O. Pulmonary intralobar sequestration associated with aspergillosis and aspiration. *Clin. Case Rep.* 2020; 8 (10): 1880–1883. DOI: 10.1002/ccr3.3039.
12. Walker C.M., Wu C.C., Gilman M.D. et al. The imaging spectrum of bronchopulmonary sequestration. *Curr. Probl. Diagn. Radiol.* 2014; 43 (3): 100–114. DOI: 10.1067/j.cpradiol.2014.01.005.
13. Neal K.A., Siegel M.J. The hypogenetic lung (Scimitar) syndrome. *Radiology*. 2019; 293 (3): 522. DOI: 10.1148/radiol.2019191540.
14. Костюков К.В., Демидов В.Н., Машинец Н.В., Гус А.И. Редкий случай пренатальной диагностики врожденной диафрагмальной грыжи в сочетании с легочным секвестром у плода (обзор литературы и собственное наблюдение). *Ультразвуковая и функциональная диагностика*. 2016; (1): 40–44. Доступно на: <https://elibrary.ru/item.asp?id=25849362>

Поступила: 01.11.22  
Принята к печати: 20.04.23

## References

1. Nadeem M., Elnazir B., Grealley P. Congenita pulmonary malformation in children. *Scientifica*. 2012; 2012: 209896. DOI: 10.6064/2012/209896.
2. Sade R.M., Clouse M., Ellis F.H. Jr. The spectrum of pulmonary sequestration. *Ann. Thorac. Surg.* 1974; 18 (6): 644–658. DOI: 10.1016/s0003-4975(10)64417-7.

3. Savic B., Birtel F.J., Tholen W. et al. Lung sequestration: report of seven cases and review of 540 published cases. *Thorax*. 1979; 34 (1): 96–101. DOI: 10.1136/thx.34.1.96.
4. Ellis K. Fleischner lecture: Developmental abnormalities in the systemic blood supply to the lungs. *AJR Am. J. Roentgenol.* 1991; 156 (4): 669–679. DOI: 10.2214/ajr.156.4.2003427.
5. Wei Y., Li F. Pulmonary sequestration: a retrospective analysis of 2625 cases in China. *Eur. J. Cardiothorac. Surg.* 2011; 40 (1): e39–42. DOI: 10.1016/j.ejcts.2011.01.080.
6. Cook J., Chitty L.S., De Coppi P. et al. The natural history of prenatally diagnosed congenital cystic lung lesions: long-term follow-up of 119 cases. *Arch. Dis. Childhood.* 2017; 102 (9): 798–803. DOI: 10.1136/archdischild-2016-311233.
7. Leblanc C., Baron M., Desselas E. et al. Congenital pulmonary airway malformations: state-of-the-art review for pediatrician's use. *Eur. J. Pediatrics.* 2017; 176 (12): 1559–1571. DOI: 10.1007/s00431-017-3032-7.
8. Rosales B.C., Estévez A.D.M., Campañá V.R. Intralobar pulmonary sequestration in adult older than 50. *Revista Cubana de Medicina.* 2014; 53 (1): 97–103. Available at: <https://www.medigraphic.com/cgi-bin/new/resumenI.cgi?IDARTICULO=51194>
9. Alsumrain M., Ryu J.H. Pulmonary sequestration in adults: a retrospective review of resected and unresected cases. *BMC Pulm. Med.* 2018; 18 (1): 97. DOI: 10.1186/s12890-018-0663-z.
10. Sun X., Xiao Y. Pulmonary sequestration in adult patients: a retrospective study. *Eur. J. Cardiothorac. Surg.* 2015; 48 (2): 279–282. DOI: 10.1093/ejcts/ezu397.
11. Zaccarini D.J., El-Zammar O. Pulmonary intralobar sequestration associated with aspergillosis and aspiration. *Clin. Case Rep.* 2020; 8 (10): 1880–1883. DOI: 10.1002/ccr3.3039.
12. Walker C.M., Wu C.C., Gilman M.D. et al. The imaging spectrum of bronchopulmonary sequestration. *Curr. Probl. Diagn. Radiol.* 2014; 43 (3): 100–114. DOI: 10.1067/j.cpradiol.2014.01.005.
13. Neal K.A., Siegel M.J. The hypogenetic lung (Scimitar) syndrome. *Radiology.* 2019; 293 (3): 522. DOI: 10.1148/radiol.2019191540.
14. Kostyukov K.V., Demidov V.N., Mashinets N.V., Gus A.I. [Prenatal diagnosis of congenital diaphragmatic hernia combined with pulmonary sequestration (literature review and case report)]. *Ul'trazvukovaya i funktsional'naya diagnostika.* 2016; (1): 40–44. Available at: <https://elibrary.ru/item.asp?id=25849362> (in Russian).

Received: November 01, 2022

Accepted for publication: April 20, 2023

### Информация об авторах / Authors Information

**Третьяков Михаил Андреевич** — младший научный сотрудник Медицинского института Федерального государственного автономного образовательного учреждения высшего образования «Белгородский государственный национальный исследовательский университет» Министерства науки и высшего образования Российской Федерации; тел.: (4722) 30-11-12; e-mail: [tretyakov.mihail2012@yandex.ru](mailto:tretyakov.mihail2012@yandex.ru) (ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1694-9443>)

**Mikhail A. Tretyakov**, Junior Researcher, Medical Institute, Federal State Autonomous Educational Institution of Higher Education “Belgorod State National Research University”, Ministry of Science and Higher Education of the Russian Federation; tel.: (4722) 30-11-12; e-mail: [tretyakov.mihail2012@yandex.ru](mailto:tretyakov.mihail2012@yandex.ru) (ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1694-9443>)

**Третьяков Андрей Юрьевич** — д. м. н., профессор, профессор Медицинского института Федерального государственного автономного образовательного учреждения высшего образования «Белгородский государственный национальный исследовательский университет» Министерства науки и высшего образования Российской Федерации; тел.: (4722) 30-11-12; e-mail: [opensource2007@yandex.ru](mailto:opensource2007@yandex.ru) (ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1691-9439>)

**Andrey Yu. Tretyakov**, Doctor of Medicine, Professor, Professor, Medical Institute, Federal State Autonomous Educational Institution of Higher Education “Belgorod State National Research University”, Ministry of Science and Higher Education of the Russian Federation; tel.: (4722) 30-11-12; e-mail: [opensource2007@yandex.ru](mailto:opensource2007@yandex.ru) (ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1691-9439>)

### Участие авторов

**Третьяков М.А.** — концепция, дизайн исследования, сбор и обработка материала, написание текста

**Третьяков А.Ю.** — редактирование текста

Все авторы внесли существенный вклад в проведение поисково-аналитической работы и подготовку статьи, прочли и одобрили финальную версию до публикации, ответственность за целостность всех частей статьи.

### Authors Contribution

**Tretyakov M.A.** — concept, design of the study, collection and processing of material, text writing

**Tretyakov A.Yu.** — text editing

All authors made a significant contribution to the search, analysis, and preparation of the article, read and approved the final version before publication, accepted responsibility for the integrity of all parts of the article.