

РЕДКИЙ СЛУЧАЙ БРОНХОГЕННОЙ КИСТЫ У НОВОРОЖДЁННОГО РЕБЁНКА

А. А. Нартова , М. Д. Л. Оппедизано , А. С. Чепелев ,
В. А. Галичина , Е. В. Тимофеев 

Санкт-Петербургский государственный педиатрический медицинский университет, Санкт-Петербург, Россия

✉ Тимофеев Евгений Владимирович — darrieux@mail.ru

Бронхогенная киста — редкая врождённая аномалия формирования лёгочного зачатка, представляющая собой тонкостенное образование, заполненное густым содержимым, что отличает её от воздушных бронхиальных кист. Клинически бронхогенная киста может проявляться явлениями обструктивной дыхательной недостаточности, нарушениями глотания, приводят к рецидивирующим гнойно-воспалительным процессам. В работе представлен клинический случай бронхогенной кисты у новорождённого ребёнка, выявленной ещё во время беременности на 2-м УЗИ-скрининге и успешно прооперированной в плановом порядке.

Мальчик 5 дней переведён в хирургический стационар для оперативного лечения кистозного образования S10 левого лёгкого размерами 16,0×12,0×15,0 мм, содержимое кисты гомогенное, соответствующее жидкости. Проведено оперативное лечение — образование отделено от париетальной плевры, удалено и отправлено в патологоанатомическое отделение для гистологического исследования. Послеоперационный период без особенностей.

Макроскопически исследуемый объект представлял собой объёмное образование серо-красного цвета с синюшным оттенком неправильной формы, тусклое, с темно-красным мелким вкраплением. На разрезе определялась тонкостенная полость, заполненная мутным желеобразным содержимым. Микроскопическое описание — киста, выстлана мерцательным эпителием, местами уплотнённым до кубического вследствие дистрофических изменений, субэпителиально — островки зрелой хрящевой ткани и небольшие группы слизистых желез. Морфологически верифицирована бронхогенная киста. Дифференциальная диагностика бронхогенных кист от воспалительных заболеваний лёгких (туберкулёз, абсцесс) при несвоевременной диагностике в отсутствие клинических проявлений без гистологического исследования практически невозможна. Определяющими являются пренатальная диагностика и морфологическое исследование операционного материала.

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА: бронхогенная киста, бронхиальная киста, врождённые аномалии развития, гистологическое исследование, новорождённые.

ДЛЯ ЦИТИРОВАНИЯ: Нартова А.А., Оппедизано М.Д.Л., Чепелев А.С., Галичина В.А., Тимофеев Е.В. Редкий случай бронхогенной кисты у новорождённого ребёнка // *Juvenis scientia*. 2024. Том 10. № 1. С. 43-50. DOI: 10.32415/jscientia_2024_10_1_43-50. EDN: MJLQVC.

Case report

DOI: 10.32415/jscientia_2024_10_1_43-50
EDN: MJLQVC

A RARE CASE OF BRONCHOGENIC CYST IN A NEWBORN BABY

A. A. Nartova , M. D. L. Oppedizano , A. S. Chepelev ,
V. A. Galichina , E. V. Timofeev 

Saint Petersburg State Pediatric Medical University, Saint Petersburg, Russia

 Timofeev Eugene — darrieux@mail.ru

Bronchogenic cyst is a rare congenital anomaly of the formation of the pulmonary germ, a thin-walled formation filled with thick contents, which distinguishes it from aerial bronchial cysts. Clinically, a bronchogenic cyst can manifest itself as obstructive respiratory failure, swallowing disorders, and lead to recurrent purulent-inflammatory processes.

In this article, we present a clinical case of bronchogenic cyst in a newborn child, detected during pregnancy at the 2nd ultrasound screening and successfully operated on as planned.

A 5-day-old boy was transferred to a surgical hospital for surgical treatment of cystic formation of the left lung S10 with dimensions 16.0×12.0×15.0 mm; the cyst contents were homogeneous, corresponding to the fluid. Surgical treatment was performed — the formation was separated from the parietal pleura and sent to the pathology department for histological examination. No complications were observed in the postoperative period.

The macroscopically studied object was a three-dimensional formation of gray-red color with a bluish tinge of irregular shape, dull, with a dark red fine sprinkling. A thin-walled cavity filled with cloudy jelly-like contents was determined on the incision. Microscopic description — a cyst lined with ciliated epithelium, partially flattened to cubic due to dystrophic changes, subepithelial islets of mature cartilage tissue and small groups of mucous glands. Thus, a bronchogenic cyst was morphologically verified.

Differential diagnosis of bronchogenic cysts from inflammatory lung diseases (tuberculosis, abscess) with untimely diagnosis in the absence of clinical manifestations is practically impossible without histological examination. Therefore, prenatal diagnosis and morphological examination of the surgical material are crucial.

KEYWORDS: bronchogenic cyst, bronchial cyst, congenital malformations, histological examination, newborns.

FOR CITATION: Nartova AA, Oppedizano MDL, Chepelev AS, Galichina VA, Timofeev EV. A Rare Case of Bronchogenic Cyst in a Newborn Baby. *Juvenis scientia*. 2024;10(1):43-50. DOI: 10.32415/jscientia_2024_10_1_43-50.



ВВЕДЕНИЕ

Бронхогенная киста была описана Н. Меуер в 1859 году как врождённая аномалия формирования лёгочного зачатка из вентрального отдела первичной кишки на 3–7-й неделе эмбриогенеза. Морфологически киста представляет собой тонкостенное образование округлой, овальной или грушевидной формы размером от 2–3 до 20 см и более, просвет которого заполнен густым содержимым мукоидного характера. Стенка кисты выстлана цилиндрическим или кубическим реснитчатым эпителием, также в ней могут присутствовать гладкомышечные волокна, хрящевая и нервная ткань, кровеносные сосуды, очаги грубоволокнистой соединительной ткани [1–3].

Сведения о бронхогенных кистах в русскоязычной и зарубежной литературе достаточно скудны, так как данные образования часто описываются как бронхиальные. С точки зрения эмбриологии — это два разных вида кист, что доказывается множеством ранее проведённых гистологических исследований. Бронхогенные кисты всегда заполнены мутным слизистым секретом, и их относят к эмбриопатиям, а бронхиальные, как правило, воздушные — относятся к порокам развития лёгочной ткани, так как они всегда связаны с бронхиальным деревом, являясь его производным [4].

На основании накопленного опыта Н. С. Маier к 1948 году выделил следующие формы бронхогенных кист: 1) паратрахеальная, 2) бифуркационная, 3) корневая, 4) околопищеводная, 5) смешанная или отшнуровавшаяся киста [3].

Все вышеперечисленные кисты обычно располагаются асимметрично, причём более чем в 70% описанных случаев они являются правосторонними, в 20% — левосторонними и лишь в 10% локализируются строго по средней линии. Из них паратрахеально — около 40%, в области бифуркации и около главных бронхов — 40%, околопищеводных — 20% [5].

Смешанная форма бронхогенных кист встречается крайне редко. Её локализация зависит от стадии эмбрионального развития, на которой произошла миграция зачатка дыхательной трубки. Например, описаны случаи расположения отшнуровавшейся кисты в брюшной полости (чаще кисты локализу-

ются в брыжейке тонкого кишечника и желудочно-печеночной связке), ретроперитонеально (около левого надпочечника, поджелудочной железы), в диафрагме, внутри перикарда и спинномозгового канала, в стенке желудка, подкожной клетчатке и коже [6–10].

По результатам многолетних наблюдений было выявлено, что бронхогенные кисты чаще всего располагаются в средостении, в то время как внутрилегочные бронхиальные кисты составляют около 15–20% и обычно встречаются в нижних долях. Локализация зависит от срока формирования — в ранний период развития кисты обычно локализируются в средостении, в то время как возникающие позднее располагаются в паренхиме лёгкого. Также стоит отметить, что данный вид образований наблюдается не только у младенцев и детей, но и у взрослых [11, 12].

Яркая клиническая симптоматика при данном заболевании чаще встречается в педиатрической популяции. У детей в стенке трахеи и бронхов хрящевой и мышечный каркас до конца не сформирован, вследствие этого стенка более податлива давлению прилежащей кисты, что проявляется кашлем, цианозом, одышкой, стридорозным дыханием, рецидивирующими воспалительными лёгочными заболеваниями, дисфагией и т.д. Из множества наблюдавшихся взрослых пациентов больше половины жалоб не предъявляли. У остальных отмечался редкий сухой кашель, неприятные ощущения в груди и одышка. Однако даже если заболевание протекает бессимптомно, большинство из бронхогенных кист в конечном итоге приобретают симптоматический или осложнённый характер течения, следовательно, являются опасными для жизни [13].

На данный момент не существует специфических маркеров, которые бы позволили отличить врождённые бронхогенные кисты от приобретённого кистозного поражения (абсцесс лёгкого, грибковые заболевания, туберкулёз и т.д.) на КТ или МРТ-скрининге, особенно если чужеродное образование заполнено воздухом или жидкостью. Окончательный диагноз может быть подтверждён только после хирургического иссечения с дальнейшим гистопатологическим исследованием [13, 14].

Таким образом, актуальность изучения бронхогенных кист в современных реалиях очень велика, так как отсутствие характерных симптомов на ранних этапах развития процесса и сложность дифференциальной диагностики и морфологической верификации могут приводить к ошибкам диагностики и, как следствие, — к нерациональной лечебной тактике.

КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ

Ребёнок мужского пола родился в Перинатальном центре Санкт-Петербургского государственного педиатрического медицинского университета (СПбГПМУ) 08.07.2021 г. На 2-м скрининге по данным УЗИ во время беременности у плода выявлено кистозно-аденоматозное образование левого лёгкого. Родоразрешение произошло в 39 недель, с ранним излитием околоплодных вод, однако состояние ребёнка при рождении расценивалось как удовлетворительное, по шкале Апгар 8/9. На 5-е сутки жизни переведён в Отделение патологии новорождённых и детей грудного возраста для расширенного обследования и решения вопроса о дальнейшей тактике лечения.

При поступлении в стационар ребёнок был гемодинамически стабилен, кожные покровы и слизистые чистые и розовые. ЧСС — 148 уд/мин, тоны сердца ритмичные, шумов не слышно. Ребёнок находился на самостоятельном дыхании. Живот не вздут, симметричный, при пальпации мягкий, безболезненный.

В ходе госпитализации был проведён ряд инструментальных исследований, в том числе мультиспиральная компьютерная томография области груди по стандартной методике в условиях болюсного введения контрастного вещества. По результатам МСКТ в S10 левого лёгкого определялось кистовидное патологическое образование с чёткими ровными контурами, имеющее размеры $16,0 \times 12,0 \times 15,0$ мм, содержимое кисты однородное, соответствующее жидкости. Окружающие ткани без признаков отёка и инфильтрации. Все остальные органы без изменений. На основании полученных данных сделано заключение: картина кистозного образования в проекции S10 слева.

По результатам лабораторной диагностики

не было обнаружено повышения метаболитов катехоламинов, показатели в динамике не нарастали. По данным УЗИ органов брюшной полости патологии не выявлено. Осмотрен онкологом — нельзя исключить нейрогенную и герминогенную природу образования. В связи с этим показано оперативное лечение в плановом порядке.

Ребёнку выполнено оперативное вмешательство по удалению кистозного образования грудной полости. Под общим обезболиванием после обработки операционного поля установлено 3 троакара: оптический 5 мм в 5-м межреберье по среднеподмышечной линии, 5 мм — в 4-м межреберье по среднеподмышечной линии, 4 мм — в 7-м межреберье по лопаточной линии. В плевральной полости спаяк и жидкости обнаружено не было. Медиально сразу над диафрагмой выявлено кистозное образование (секвестр?), размерами $2,0 \times 1,0 \times 1,5$ см, покрытое париетальной плеврой. Питающие сосуды склерозированы, укрыты плеврой. Образование было отделено от париетальной плевры при помощи ультразвукового ножа, удалено через расширенную троакарную рану в 5-м межреберье и отправлено в патологоанатомическое отделение для гистологического исследования. Послеоперационный период протекал гладко, на контрольной рентгенограмме органов грудной клетки патологии не обнаружено.

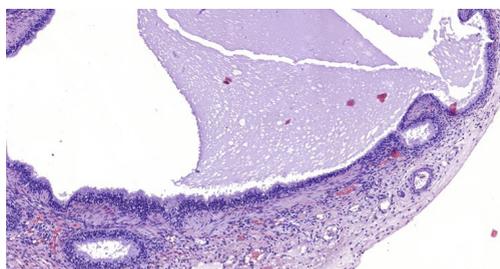
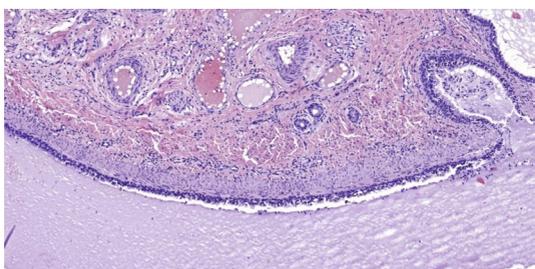
МОРФОЛОГИЧЕСКОЕ ИССЛЕДОВАНИЕ

Макроскопически исследуемый объект представлял собой объёмное образование серо-красного цвета с синюшным оттенком, неправильной формы, тусклое, с темно-красным мелким вкраплением. На разрезе определялась тонкостенная полость, заполненная мутным желеобразным содержимым (рис. 1, 2).

Микроскопическое описание: в присланном материале киста, стенка которой представлена волокнистой соединительной тканью с полнокровными сосудами разного размера и формы. Выстилка кисты представлена мерцательным эпителием, местами уплощённым до кубического вследствие дистрофических изменений (рис. 3–7). Субэпителиально определяются островки зрелой хрящевой ткани (рис. 8) и небольшие группы слизистых же-



Рисунки 1, 2. Бронхогенная киста, макропрепарат. На разрезе определялась тонкостенная полость, заполненная мутным желеобразным содержимым.



Рисунки 3, 4. Выстилка кисты представлена мерцательным эпителием, очагово уплотнённым до кубического. Просвет заполнен гомогенными эозинофильными массами. В стенке наблюдаются полнокровные сосуды микроциркуляторного русла. Гематоксилин-эозин, $\times 100$.

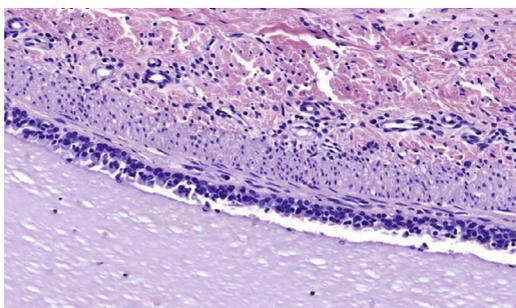


Рисунок 5. Очаговая десквамация мерцательного эпителия, выстилающего кисту. Стенка кисты представлена волокнистой соединительной тканью. Гематоксилин-эозин, $\times 400$.

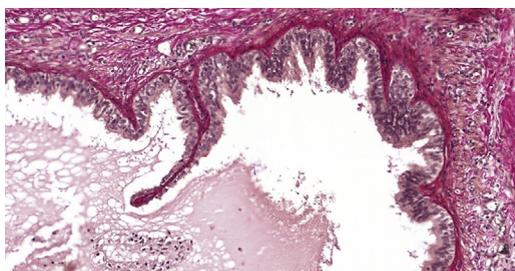
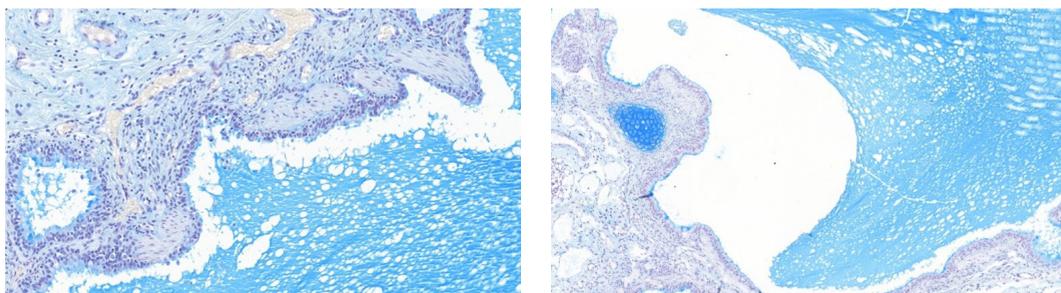


Рисунок 6. Стенка кисты представлена волокнистой соединительной тканью. Окраска пикрофуксином по Ван Гизону, $\times 200$.

лез. В полости кисты визуализируются эозинофильные гомогенные массы. Кроме этого, в исследуемом материале определяются мелкие фрагменты

жировой ткани. На основании полученных данных было сделано заключение: присланное образование представляет собой бронхогенную кисту.

Ребёнок был выписан в удовлетворительном состоянии 12.08.2021. Выполнено магнитно-



Рисунки 7, 8. При окраске альциановым синим муцин-содержащие клетки и содержимое кисты окрашиваются в ярко-голубой цвет. В стенке кисты наблюдается островок зрелой хрящевой ткани. Альциановый синий, $\times 100$.

резонансное исследование органов грудной полости, при котором патологические изменения не выявлены.

ОБСУЖДЕНИЕ

Одним из самых трудно диагностируемых патологических процессов грудной клетки у плода является кистозное поражение лёгких. К наиболее распространённым образованиям относят кистозно-аденоматозную трансформацию, лёгочную секвестрацию, бронхиальную и бронхогенную кисты [15–17]. Прогрессивный рост кистозных образований, как внутриутробно, так и постнатальном периоде может вызвать ряд тяжёлых осложнений, таких как сердечно-сосудистая и дыхательная недостаточность, что в свою очередь негативно сказывается на дальнейшем росте и развитии ребёнка. Кроме этого, всегда сохраняется риск инфицирования и малигнизации патологического процесса. Следовательно, всем новорождённым с диагнозом «кистозное поражение лёгких» чаще

всего требуется хирургическое лечение с иссечением кистозного образования и последующим гистологическим исследованием [15].

Приведённый клинический случай демонстрирует трудности диагностики в дооперационном периоде. В связи с этим особое значение придаётся последующему гистологическому исследованию для верификации диагноза.

Финансирование: Авторы заявляют об отсутствии финансирования.

Конфликт интересов: Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Вклад авторов: Все авторы подтверждают соответствие своего авторства, согласно международным критериям *ICMJE* (все авторы внесли существенный вклад в разработку концепции, проведение исследования и подготовку статьи, прочли и одобрили финальную версию перед публикацией).

ЛИТЕРАТУРА [REFERENCES]

1. Платов И.И. *О кистах лёгких* // Хирургия. Приложение к журналу Consilium Medicum. **2014**. № 2. С. 15-18. [Platov II. *O kistakh legkikh (About lung cysts)*. Hirurgija. Prilozhenie k zhurnalu Consilium Medicum. **2014**;(2):15-18. (in Russ.)]. EDN: TIAEXF.
2. Смирнов А.В., Калинин В.Д., Берелавичус С.В., и др. *Робот-ассистированное удаление ретроперитонеальной бронхогенной кисты* // Хирургия. Журнал им. Н.И. Пирогова. **2014**. № 10. С. 118-121. [Smirnov AV, Kalinin VD, Berelavichus SV, et al. *Robot-Assisted Excision of Retroperitoneal Bronchogenic Cyst*. Pirogov Russian Journal of Surgery. **2014**;(10):118-121. (in Russ.)]. EDN: TAQYIH.
3. Tu C, Zhu J, Shao C, et al. *Gastric bronchogenic cysts: A case report and literature review*. Exp Ther Med. **2016**;11(4):1265-1270. DOI: 10.3892/etm.2016.3067.
4. Платов И.И., Гудовский Л.М., Корнеев А.Е. *О генезе солитарных кист лёгкого и их классификации*.

- Хирургия. Журнал им. Н.И. Пирогова. **2001**. № 6. С. 52-54. [Platov II, Gudovsky LM, Korenev AE. *Genesis of solitary pulmonary cysts and their classification*. Pirogov Russian Journal of Surgery. **2001**;(6):52-54. (in Russ.)].
5. Розенштраух Л.С., Винер М.Г. *Дифференциальная рентгенодиагностика заболеваний органов дыхания и средостения: Руководство для врачей*. М., **1991**. 352 с. [Rozenstrauh LS, Viner MG. *Differencial'naja rentgenodiagnostika zabolevanij organov dyhanija i sredostenija: Rukovodstvo dlja vrachej (Differential X-ray diagnosis of diseases of the respiratory system and mediastinum: A guide for doctors)*. Moscow, **1991**. 352 p. (in Russ.)].
 6. Petrina A, Boselli C, Cirocchi R, et al. *Bronchogenic cyst of the ileal mesentery: a case report and a review of literature*. J Med Case Rep. **2010**;4:313. DOI: 10.1186/1752-1947-4-313.
 7. Gou Y, Wang Y, Fang H, et al. *Bronchogenic cyst in the hepatogastric ligament masquerading as an esophageal mesenchymal tumor: a case report*. Int J Clin Exp Pathol. **2015**;8(11):15307-15311.
 8. Dewing SB, Roessel CW, Olmstead EV. *Enterogenous cyst of the stomach wall, a rare benign lesion; case report*. Ann Surg. **1956**;143(1):131-135. DOI: 10.1097/00000658-195601000-00019.
 9. Никитин С.В. *Пренатальная диагностика бронхогенной кисты средостения // Пренатальная диагностика*. **2002**. Т. 1(3). С. 222-223. [Nikitin SV. *Prenatal'naja diagnostika bronhogennoj kisty sredostenija (Prenatal diagnosis of bronchogenic mediastinal cyst)*. Prenatal'naja diagnostika. **2002**;1:222-223. (in Russ.)].
 10. Govaerts K, Van Eyken P, Verswijvel G, Van der Speeten K. *A bronchogenic cyst, presenting as a retroperitoneal cystic mass*. Rare Tumors. **2012**;4(1):e13. DOI: 10.4081/rt.2012.e13.
 11. St-Georges R, Deslauriers J, Duranceau A, et al. *Clinical spectrum of bronchogenic cysts of the mediastinum and lung in the adult*. Ann Thorac Surg. **1991**;52(1):6-13. DOI: 10.1016/0003-4975(91)91409-o.
 12. Lardinois D, Gugger M, Ris HB. *Bronchogenic cyst of the left lower lobe associated with severe hemoptysis*. Eur J Cardiothorac Surg. **1999**;16(3):382-383. DOI: 10.1016/s1010-7940(99)00226-2.
 13. Ribet ME, Copin MC, Gosselin BH. *Bronchogenic cysts of the lung*. Ann Thorac Surg. **1996**;61(6):1636-1640. DOI: 10.1016/0003-4975(96)00172-5.
 14. Yoon YC, Lee KS, Kim TS, et al. *Intrapulmonary bronchogenic cyst: CT and pathologic findings in five adult patients*. AJR Am J Roentgenol. **2002**;179(1):167-170. DOI: 10.2214/ajr.179.1.1790167.
 15. Albanese CT, Sydorak RM, Tsao K, Lee H. *Thoracoscopic lobectomy for prenatally diagnosed lung lesions*. J Pediatr Surg. **2003**;38(4):553-555. DOI: 10.1053/jpsu.2003.50120.
 16. Adzick NS, Flake AW, Crombleholme TM. *Management of congenital lung lesions*. Semin Pediatr Surg. **2003**;12(1):10-16. DOI: 10.1053/spsu.2003.50002.
 17. Adzick NS, Harrison MR, Crombleholme TM, et al. *Fetal lung lesions: management and outcome*. Am J Obstet Gynecol. **1998**;179(4):884-889. DOI: 10.1016/s0002-9378(98)70183-8.

АВТОРЫ [AUTHORS]

Нартова Анастасия Александровна, студентка 6-го курса Санкт-Петербургского государственного педиатрического медицинского университета; ORCID: 0009-0006-2152-8826.

Nartova Anastasia Alexandrovna, 6th year student of the Saint Petersburg State Pediatric Medical University; ORCID: 0009-0006-2152-8826.

Оппедизано Михаил Джузеппе Луиджиевич, студент 6-го курса Санкт-Петербургского государственного педиатрического медицинского университета; ORCID: 0000-0001-9304-4472.

Oppedisano Mikhail Giuseppe Luigievic, 6th year student of the Saint Petersburg State Pediatric Medical University; ORCID: 0000-0001-9304-4472.

Чепелев Александр Сергеевич, ассистент кафедры патологической анатомии с курсом судебной медицины им. проф. Д.Д. Лохова Санкт-Петербургского государственного педиатрического медицинского университета; ORCID: 0000-0002-4127-3457.

Chepelev Alexandr Sergeevich, Assistant at the Department of Pathological Anatomy with the course of Forensic Medicine named after Prof. D.D. Lokhov at the Saint Petersburg State Pediatric Medical University; ORCID: 0000-0002-4127-3457.

Галичина Вероника Андреевна, ассистент кафедры патологической анатомии с курсом судебной медицины им. проф. Д.Д. Лохова Санкт-Петербургского государственного педиатрического медицинского университета; ORCID: 0000-0001-8424-814X.

Galichina Veronika Andreevna, Assistant at the Department of Pathological Anatomy with the course of Forensic Medicine named after Prof. D.D. Lokhov of the Saint Petersburg State Pediatric Medical University; ORCID: 0000-0001-8424-814X.

✉ *Тимофеев Евгений Владимирович*, доктор медицинских наук, доцент, профессор кафедры пропедевтики внутренних болезней Санкт-Петербургского государственного педиатрического медицинского университета; ORCID: 0000-0001-9607-4028; email: darrieux@mail.ru.

✉ *Timofeev Eugene Vladimirovich*, Doctor of Medical Sciences, Assistant professor, Professor at the Department of Propaedeutics of Internal Diseases at the Saint Petersburg State Pediatric Medical University; ORCID: 0000-0001-9607-4028; email: darrieux@mail.ru.

Поступила в редакцию: 15.12.2023

Принята к печати: 21.02.2024

Опубликована: 29.02.2024