

УДК 617.559–006.2:616.13–007.272–089.27–053.1–053.31–073.48

О.К. Слепов<sup>1</sup>, О.В. Передерій<sup>1</sup>, Г.О. Гребініченко<sup>2</sup>, Н.Я. Скрипченко<sup>2</sup>, І.О. Дітківський<sup>3</sup>,  
Раад Таммо<sup>4</sup>, М.І. Дейнега<sup>2</sup>

# Рідкісне спостереження одномоментного видалення гігантської крижово-куприкової тератоми з масивними пресакральним і зовнішнім компонентами та доопераційною ендovasкулярною оклюзією живлячих артерій пухлини в новонародженій дитини

<sup>1</sup>Центр неонатальної хірургії вад розвитку та їх реабілітації ДУ «Інститут педіатрії, акушерства і гінекології імені академіка О.М. Лук'янової НАМН України», м. Київ

<sup>2</sup>ДУ «Інститут педіатрії, акушерства і гінекології імені академіка О.М. Лук'янової НАМН України», м. Київ

<sup>3</sup>ДУ «Національний інститут серцево-судинної хірургії імені М.М. Амосова НАМН України», м. Київ

<sup>4</sup>ДУ «Науково-практичний медичний центр дитячої кардіології та кардіохірургії МОЗ України», м. Київ

Paediatric Surgery(Ukraine).2024.2(83):97-106; doi 10.15574/PS.2024.83.97

**For citation:** Slieпов OK, Perederii OV, Grebinichenko GO, Skrypchenko NY, Ditkivskyy IO, Tammo Raad, Deinega MI. (2024). A rare observation of simultaneous removal of a giant sacrococcygeal teratoma, with massive presacral and external components, and preoperative endovascular occlusion of the feeding arteries of the tumor, in a newborn. Paediatric Surgery (Ukraine). 2(83): 97-106; doi: 10.15574/PS.2024.83.97.

**Мета** – на основі клінічного випадку проаналізувати й описати досвід одномоментного видалення гігантської крижово-куприкової тератоми (ККТ) із масивними пресакральним і зовнішнім компонентами та доопераційною ендovasкулярною оклюзією живлячих артерій пухлини в новонародженій дитини.

**Клінічний випадок.** Наведено унікальний клінічний випадок гігантської ККТ з масивними пресакральним і зовнішнім компонентами та доопераційною ендovasкулярною оклюзією живлячих артерій пухлини у новонародженій дитини. Описано особливості перинатального супроводу, доопераційної ендovasкулярної оклюзії живлячих артерій ККТ та хірургічного втручання, які є важливими елементами оптимізації лікування дітей із цією життєзагрожуючою патологією.

**Висновки.** У діагностиці та лікуванні ККТ необхідний науково обґрунтований, диференційований підхід, який передбачає: ранню (до 22 тижнів гестації) комплексну пренатальну діагностику для вибору раціональної тактики ведення вагітності, диспансеризацію плода, розродження шляхом кесаревого розтину, постнатальну діагностику, передопераційну підготовку та хірургічне лікування. Уперше описана доопераційна ендovasкулярна оклюзія живлячих артерій пресакрального та зовнішнього компонентів ККТ (III типу) забезпечує деваскуляризацію пухлини та мінімізацію інтраопераційної крововтрати при одномоментній резекції високоваскуляризованого гігантського новоутворення. Адекватне оцінювання і раціональне консервативне лікування тяжкого ускладнення раннього післяопераційного періоду – тромбозу інфраренального відділу аорти, дали змогу ліквідувати життєзагрожуюче ускладнення, домогтися повної реканалізації тромбованого відділу аорти і відновити повноцінний кровотік у нижніх кінцівках.

Дослідження виконано відповідно до принципів Гельсінської декларації. На проведення досліджень отримано інформовану згоду жінки.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

**Ключові слова:** гігантська крижово-куприкова тератома, пренатальна діагностика, перинатальний супровід, диспансеризація плода, новонароджена дитина, ендovasкулярна оклюзія живлячих артерій пухлини.

*Clinical case***A rare observation of simultaneous removal of a giant sacrococcygeal teratoma, with massive presacral and external components, and preoperative endovascular occlusion of the feeding arteries of the tumor, in a newborn****O.K. Sliopov<sup>1</sup>, O.V. Perederii<sup>2</sup>, G.O. Grebinichenko<sup>2</sup>, N.Y. Skrypchenko<sup>2</sup>, I.O. Ditkivskyy<sup>3</sup>, Raad Tammo<sup>4</sup>, M.I. Deinega<sup>2</sup>**<sup>1</sup>Center for neonatal surgery for malformations and their rehabilitation of SI «Institute of Pediatrics, Obstetrics and Gynecology named after academician O.M. Lukyanova of the NAMS of Ukraine», Kyiv, Ukraine<sup>2</sup>SI «Institute of Pediatrics, Obstetrics and Gynecology named after academician O.M. Lukyanova of the NAMS of Ukraine», Kyiv, Ukraine<sup>3</sup>National Amosov Institute of Cardiovascular Surgery of the NAMS of Ukraine, Kyiv, Ukraine<sup>4</sup>Ukrainian Children's Cardiac Center, Kyiv, Ukraine**Aim** – to analyze and describe the experience of a one-moment removal of a giant sacrococcygeal teratoma (SCT), with massive presacral and external components (III type), and preoperative endovascular occlusion of the feeding arteries of the tumor, in a newborn, based on a clinical case.**Clinical case.** A unique clinical case of a giant SCT with massive presacral and external components and preoperative endovascular occlusion of the feeding arteries of the tumor in a newborn is presented. Features of perinatal support, preoperative endovascular occlusion of the feeding arteries of the SCT and surgical intervention are described, which are important elements of optimizing the treatment of children with this life-threatening pathology.**Conclusions.** In the diagnosis and treatment of SCT, a scientifically based, differentiated approach is necessary, which includes: early (up to 22 weeks of gestation) complex prenatal diagnosis for choosing rational tactics of pregnancy management, examination of the fetus, delivery by cesarean section, postnatal diagnosis, preoperative preparation and surgical treatment. The first described preoperative endovascular occlusion of the feeding arteries of the presacral and external components of the SCT provides tumor devascularization and minimization of intraoperative blood loss during one-moment resection of a highly vascularized giant tumor. Adequate assessment and rational conservative treatment of a severe complication of the early postoperative period – thrombosis of the infrarenal section of the aorta made it possible to eliminate the life-threatening complication and achieve complete recanalization of the thrombosed section of the aorta and restore full blood flow in the lower extremities. The research was carried out in accordance with the principles of the Helsinki Declaration. The informed consent of the patient was obtained for conducting studies.

No conflict of interests was declared by the authors.

**Keywords:** giant sacrococcygeal teratoma, prenatal diagnosis, perinatal support, fetal examination, newborn child, endovascular occlusion of the tumor's feeding arteries.**Вступ**

Крижово-куприкова тератома (ККТ) є найпоширенішою герміногенною пухлиною новонароджених, яка походить із куприка та містить усі три зародкові листки [14]. ККТ трапляється з частотою 1 на 15 000–40 000 пологів [9,16]. Гігантська ККТ пов'язана з високим ризиком внутрішньоутробних ускладнень, спричинених серцевою недостатністю, унаслідок артеріовенозного шунтування крові через судинне русло пухлини [14]. Антенатальна смертність за наявності ККТ у плода коливається в межах від 13% до 50%, у середньому становить 32,1% [4]. Недоношені діти, які народжуються до 32–34 тижнів гестації, виживають рідко [4]. Якщо пухлина конкурує з масою плода, зазвичай відбувається внутрішньоутробна його загибель [5]. Нами вперше в літературі описано прижиттєвий випадок діагностики і лікування гігантської ККТ, яка переважала масу тіла новонародженого в 1,5 раза [11]. Більшість випадків ККТ у плода діагностуються пренатально, частота пренатальної діагностики становить від 50% до 82% [14]. За наявності гігантської ККТ сідничної ділянки (I тип) встановлення діагнозу не викликає труднощів. Натомість, за наявності пресакрального компонента, як правило, зовнішній компонент менш ви-

ражений (II і III типи) або взагалі відсутній (IV тип). У такому разі можливі випадки пізньої госпіталізації із симптомами затримки сечі та кишкової непрохідності [2].

**Мета** дослідження – проаналізувати й описати досвід одномоментного видалення гігантської ККТ із масивними пресакральним і зовнішнім компонентами та доопераційною ендоваскулярною оклюзією живлячих артерій пухлини в новонародженої дитини.

Дослідження виконано відповідно до принципів Гельсінської декларації. На проведення досліджень отримано інформовану згоду жінки.

**Клінічне спостереження**

Вагітну жінку, віком 17 років, 1 вагітність, 1 пологи, скеровано до відділення медицини плода ДУ «Інститут педіатрії, акушерства і гінекології імені акад. О.М. Лук'янової НАМН України» (ДУ «ІПАГ ім. акад. О.М. Лук'янової НАМН України») з обласного перинатального центру з діагнозом «Природжена вада розвитку плода: утворення черевної порожнини неясного генезу, гідронефроз лівої нирки I ст., дефект міжшлуночкової перетинки». Під час огляду в порожнині малого таза та черевній порожнині плода виявлено утворення гетерогенної структури розмі-

рами 4,9×2,5×3,6 см, яке продовжується в куприково-му відділі розмірами 3,3×3,1 см; у структурі утворення переважає солідний компонент, за результатами кольорового доплерівського картування в ділянці куприка виявлено судину з артеріальним типом кровотоку (живляча судина) та інші поодинокі судини. Консиліумом у складі спеціаліста з пренатальної ультразвукової діагностики (УЗД), дитячого хірурга, акушера-гінеколога надано вичерпну інформацію щодо перинатальних і віддалених наслідків при цій патології. Незважаючи на виразний ріст пухлини, вагітною прийнято рішення щодо збереження вагітності.

У рамках пренатальної диспансеризації повторно проведено огляди у відділенні медицини плода в термінах 28 і 35–36 тижнів (табл. 1). Також зроблено пренатальну магнітно-резонансну томографію (МРТ) плода на 35-му тижні гестації для визначення характеру пухлини, її анатомо-топографічних зв'язків з оточуючими органами. На МРТ-сканах візуалізовано масивне кістозно-солідне утворення, розмірами 13,8×7,5×7,0 см, що повністю заповнює черевну порожнину. У черевній порожнині переважає солідний компонент, у тазу та позагазовій частині – кістозний (рис 3 А).

У зв'язку зі зміною швидкості росту пухлини – від помірного в II триместрі (78,9 см<sup>3</sup>/тиж) до виразного, прогресуючого росту ККТ в III триместрі вагітності (189,6 см<sup>3</sup>/тиж), а також зі значним багатоводдям вагітну в терміні 36 тижнів гестації госпіталізовано до акушерської клініки ДУ «ІПАГ ім. акад. О.М. Лук'янової НАМН України» з метою розродження шляхом планового дострокового кесаревого розтину в терміні 37 тижнів гестації. Розродження виконано в присутності бригади дитячих хірургів і реаніматологів.

Передчасно народжена дівчинка з масою тіла 3030 г, довжиною – 53 см, окружність голови – 35 см, окружність грудної клітки – 33 см. Оцінка за шкалою Апгар – 7/7 балів. З перших секунд життя проведено катетеризацію двох периферичних вен, шлунка, сечового міхура. Пальпаторно визначено новоутворення черевної порожнини в ділянках гіпо- та мезогастрію, на 2 см вище пупка, яке може спричиняти компресію внутрішніх органів. У крижово-куприковій ділянці рівномірно, по середній лінії, виявлено утворення розмірами 12,0×9,0×7,0 см, окружністю 27 см, покриті шкірою (рис. 1). Пальпаторно: утворення солідної структури, напружене, з поодинокими кістами по верхньому полюсу, у ділянці крижа – хрящеподібної консистенції. За даними діафаноскопії зовнішнього компонента ККТ виявлено переважання солідної структури.

Дитину в умовах транспортного кювету доставлено до відділення дитячої реанімації та інтенсивної тера-



Рис. 1. Вигляд зовнішнього компонента гігантської крижово-куприкової тератоми (12,0×9,0×7,0 см)

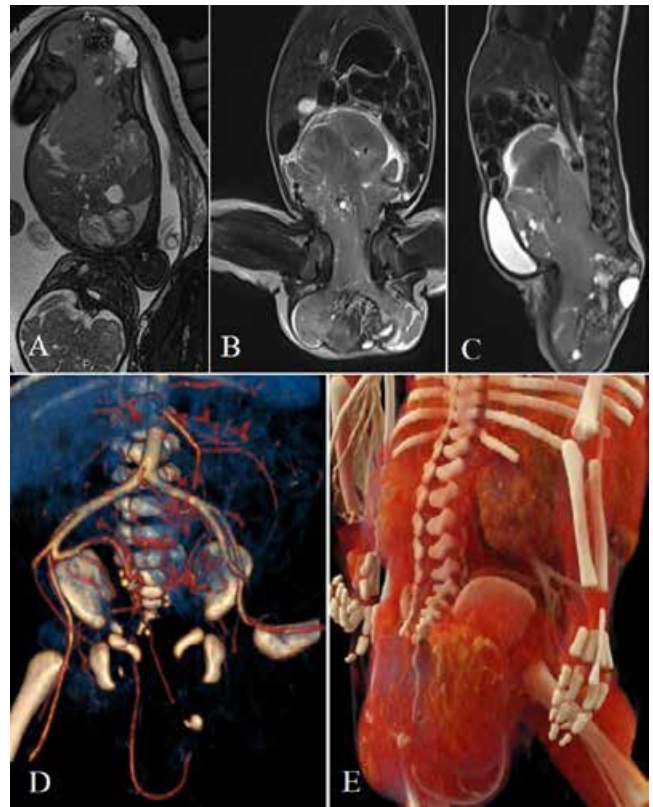


Рис. 2. На пренатальній (А) і постнатальній (В, С) магнітно-резонансній томографії в першу добу життя візуалізовано гігантське солідно-кістозне утворення черевної порожнини, малого таза з виходом у міжсідничну ділянку, що відповідає крижово-куприковій тератомі III типу. На 3D КТ-ангіографії (D, E) – кровопостачання тератоми за рахунок артерій від біфуркації аорти та внутрішніх клубових артерій



Clinical case

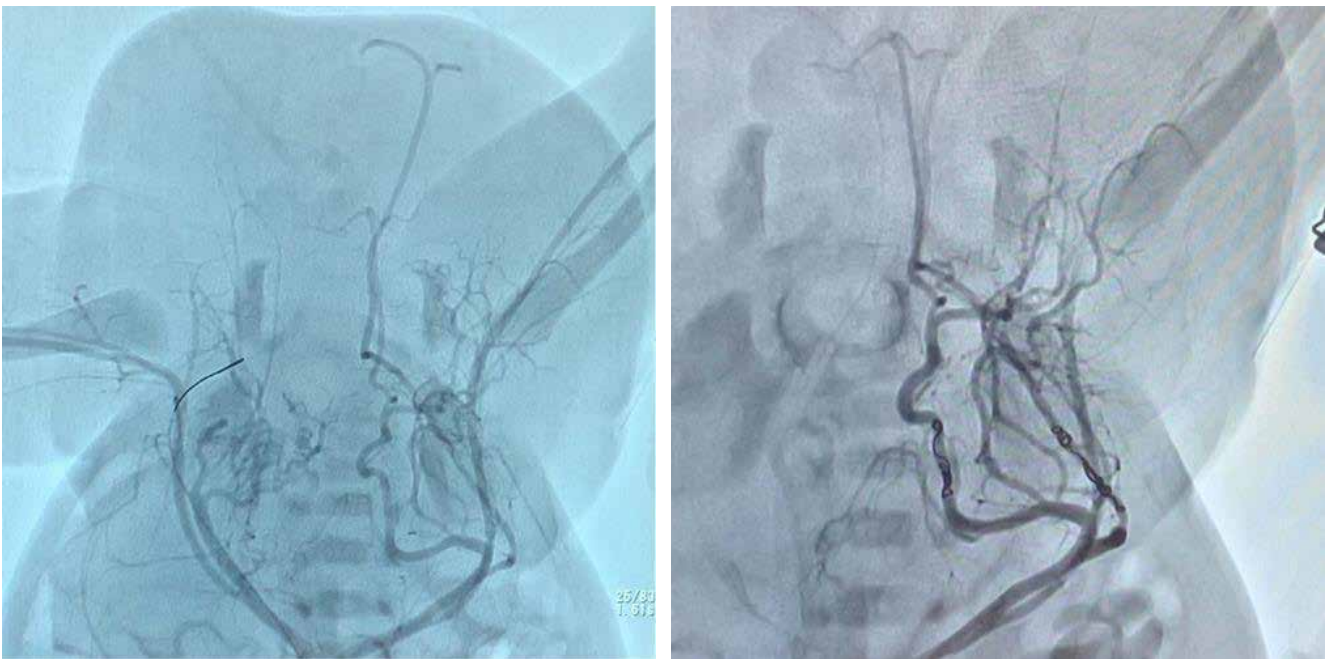
**Таблиця 1**  
Характеристика пренатального ультразвукового дослідження плода протягом вагітності

Термін гестації, тижні	Передача ваги на маса плода (г)	Розмір ККТ, см	Об'єм ККТ, см <sup>3</sup>	Зміна об'єму пухлини, см <sup>3</sup> /тиж	Індекс Tumorfate ratio (TFR)	Індекс Tumor head volume (TV:NV)	Супутня патологія	Асоційовані вади та патологічні стани
21	441	8,2x5,6x3,6	86,51	21–28 тиж 78,9	0,2	0,78	Нормальна кількість навколоплідних вод	Дефект міжшлуночнової перетинки. Двобічне розширення мисок і сечоводів унаслідок компресії сечоводів. Дистопія сечового міхура.
28	1250	13,3x10,1x9,1	639,72		0,51	2,23	Багатоводдя	Дефект міжшлуночнової перетинки. Помірна кардіомегалія. Двобічна пієлоектазія. Дистопія сечового міхура.
35–36	3003	16,0x15,2x16,3	2063,66	28–36 тиж 189,6	0,69	3,94	Багатоводдя	Дефект міжшлуночнової перетинки. Помірна кардіомегалія. Гіпоплазія обох легень середнього ступеня. Правобічний гідронефроз III ст. Дистопія/збільшення сечового міхура.

**Таблиця 2**

Діагностичний алгоритм і результати обстеження новонародженого з гігантською крижово-куприковою тератомаю

Методи дослідження	Отримані результати
Оглядова цифрова Rö: ОГК, ОЧП, тератоми	Плевральні синуси вільні. Ознаки інтраабдомінального поширення ККТ з компресією ОЧП.
УЗД нирок	УЗ-ознаки гідронефрозу III ст. справа, пієлоектазії зліва.
УЗД тератоми	У черевній порожнині візуалізовано гетерогенне утворення, вкрите капсулою, товщиною до 0,5 мм, розмірами 8,2x4,8x6,4 см, кісточно-солідної структури, з активним кровотоком. Під час обстеження м'яких тканин попереково-куприкового відділу, візуалізовано об'ємний утвір кісточно-солідної структури, з проростанням у м'язи, розмірами 5,3x3,6x2,7 см, з активним кровотоком.
НСГ	Паренхіма головного мозку підвищеної ехогенності в перивентрикулярних зонах. Судинні сплетення – без особливостей.
ЕхоКГ	Відкрите овальне вікно, відкрита артеріальна протока, легенева гіпертензія. Дефект м'язової частини міжшлуночнової перетинки.
МРТ органів малого таза без в/в контрастування	У черевній порожнині, порожнині таза виявлено велике кісточно-солідне утворення з чіткими рівними контурами (неоднорідної структури, містить жир, кальцинати) розмірами 13,5x8,5x5,5 см (рис. 3 В, С).
КТ ОЧП та малого таза з в/в контрастуванням	Множинні артерії, що кровопостачають ККТ, відходять від біфуркації аорти та внутрішніх клубових артерій, розмірами до 0,3 см (рис. 3 D, E)
Діафаноскопія пухлини	Виявлено переважання солідної структури
Альфа-фетопротейн сироватки крові	>30000 МО/мл (N<15700)



А

В

**Рис. 3.** Ангіографічна візуалізація живлячих артерій тератоми: А – до ендovasкулярного втручання; В – селективна ендovasкулярна оклюзія живлячих артерій крижово-куприкової тератоми: arteria sacralis media (2 мікроспіралі) і гілок arteria iliaca interna dextra (1 мікроспіраль)

пії, обстежено відповідно до постнатального діагностичного алгоритму, розробленого в клініці, який передбачав комплекс інструментальних і лабораторних досліджень: оглядову цифрову Rø-графію (органів грудної клітки (ОГК), черевної порожнини (ОЧП), пухлини); УЗД (пухлини, ОЧП і заочеревинного простору), ехокардіографію (ЕхоКГ), нейросонографію (НСГ)); діафаноскопію пухлини; визначення альфа-фетопротеїну сироватки крові (табл. 2, рис. 2).

За даними досліджень у дитини виявлено масивне утворення черевної порожнини, малого таза та крижово-куприкової ділянки, переважно солідної структури, з вираженою васкуляризацією. Для попередження інтраопераційних геморагічних ускладнень на 6-ту добу життя в умовах Національного інституту серцево-судинної хірургії імені М.М. Амосова (НІССХ ім. М.М. Амосова) проведено ангіографічне дослідження для візуалізації судин, що кровопостачають ККТ (рис. 3 А), з подальшою їхньою ендovasкулярною емболізацією: arteria (a.) sacralis media (2 мікроспіралі), та гілки arteria iliaca interna dextra (1 мікроспіраль) (рис. 3 В).

Особливості операції. Процедуру проведено під загальною анестезією. Виконано пункційний доступ до правої пахової артерії, встановлено інтродюсер 4F, заведено катетер МРА 4F у низхідну аорту та виконано серію почергових селективних аортографій та ангіографій артерій нижніх кінцівок: виявлено дві гемодинамічно значущі судини, що кровопоста-

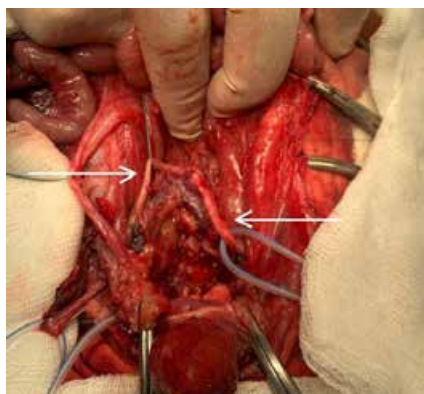
чають тератому: серединна крижова артерія (arteria sacralis media) і велика гілка від басейну правої внутрішньої клубової артерії (arteria iliaca interna dextra). Наступним етапом катетер 4F, підсилений мікрокатетером, заведено в arteria sacralis media та проведено емболізацію двома спіральними системами. Виконано емболізацію гілки arteria iliaca interna dextra аналогічною спіральною системою. Завершальним етапом проведено контрольну ангіографію: результат задовільний, положення імплантів адекватне. Інтродюсер видалено.

Дитину переведено до дитячої реанімації НІССХ ім. М.М. Амосова. Перебіг післяопераційного періоду – без особливостей.

Дитину транспортовано до дитячої реанімації ДУ «ІПАГ імені акад. О.М. Лук'янової НАМН України». Виконано пункцію внутрішньої яремної вени зі встановленням центрального венозного катетера. Наступної доби після ендovasкулярної оклюзії судин ККТ (7-ма доба життя) виконано хірургічне втручання: комбіноване субтотальне видалення тератодермоїдної пухлини черевної порожнини та крижово-куприкової ділянки (ІІІ типу).

Положення дитини – на спині. Виконано встановлення сечового катетера та ректальної труби № 16 для поліпшення ідентифікації прямої кишки. Розріз: середньо-серединна лапаротомія. У рану передлежить пухлина, яка займає весь заочеревинний простір, краніально – до рівня біфуркації аорти та нижньої

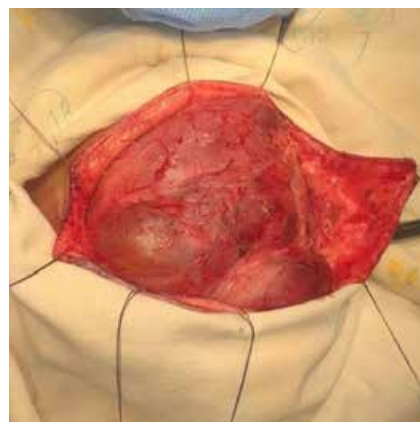
*Clinical case*



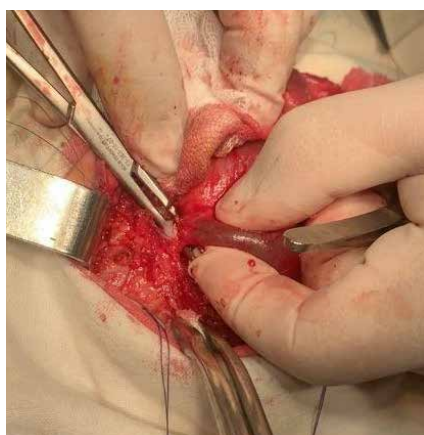
**Рис. 4.** Мобілізація пухлини в ділянці біфуркації аорти та нижньої порожнистої вени. Arteria iliaca communis dextra та sinistra мобілізовано (указано стрілками)



**Рис. 5.** Укладка на живіт перед резекцією зовнішнього компонента крижово-куприкової тератоми



**Рис. 6.** Мобілізація зовнішнього компонента крижово-куприкової тератоми



**Рис. 7.** Мобілізація куприка перед його резекцією



**Рис. 8.** Зовнішній вигляд рани крижово-куприкової ділянки після операції



**Рис. 9.** Макроскопічний препарат видаленого пресакрального компонента пухлини

порожнистої вени, на 2 см вище пупка. Проведено перев'язку та пересічення 6 судин, які кровопостачали пухлину. Їхній діаметр – від 2 мм до 3 мм. При мобілізації пухлини, у ділянці біфуркації аорти та нижньої порожнистої вени, для попередження їхнього ушкодження та можливої масивної кровотечі, залишено фрагмент капсули пухлини на стінках цих судин (рис. 4). Пухлину в межах черевної порожнини видалено методом «фрагментування», до рівня крижа. Ложе пухлини дреновано (Blascke 15Fr). Накладено пошарові шви на рану.

Потім дитину укладено на живіт із валиком під клубові кістки та плечовий пояс (рис. 5). Косим заднім сагітальним доступом у вигляді перевернутої «V» розсічено шкіру, м'які тканини (рис. 6). Куприк мобілізовано, виконано його резекцію (рис. 7). Мобілізовано судинну ніжку пухлини (артерія та вена) діаметром до 1 мм. Виконано деваскуляризацію пухлини шляхом прошивання, перев'язування та пересічення цих судин. Етапно тупо та гостро, під контролем ендоректальної трубки, пухлину виділено в межах здорових

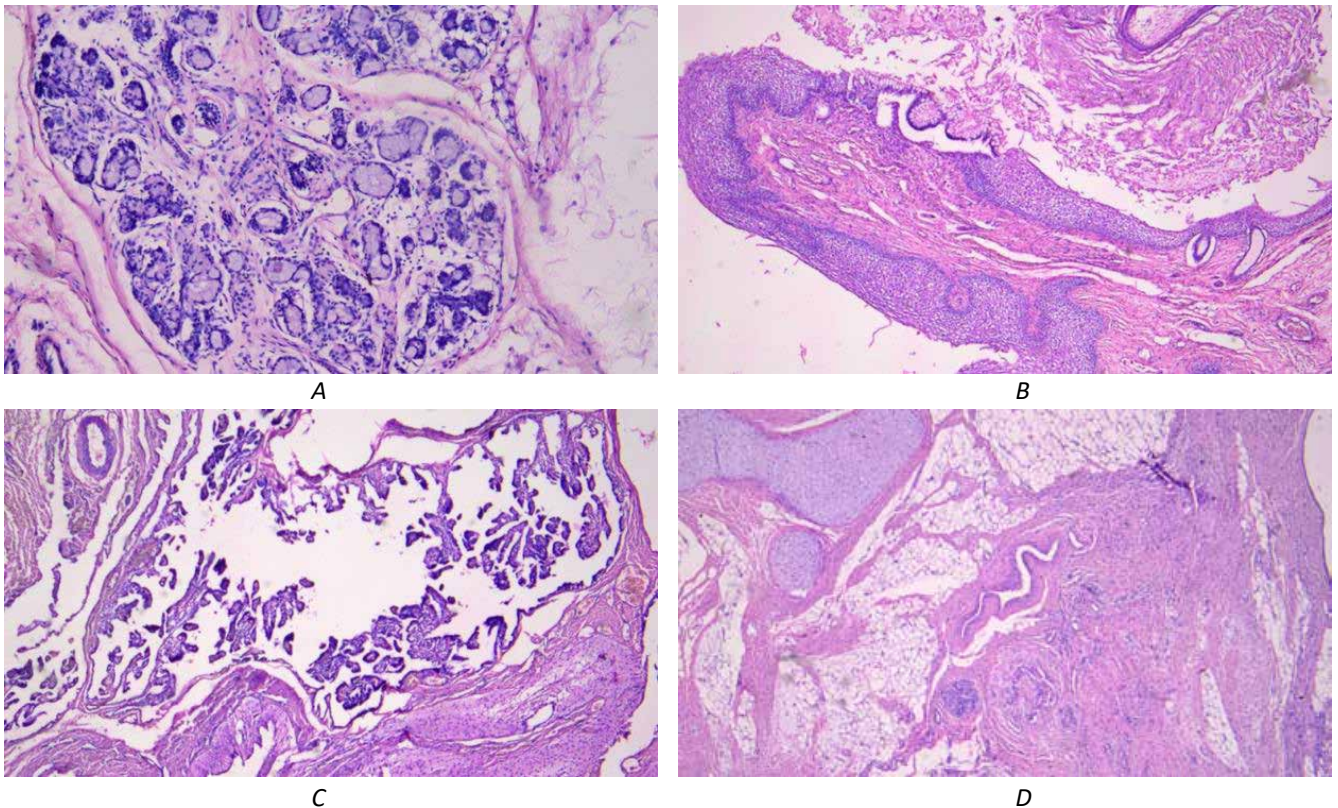
тканин, відокремлено від прямої кишки, а також видалено єдиним блоком. Пряма кишка – інтактна. Пластика м'язів тазового дна. Гемостаз по ходу операції. Ложе пухлини дреновано. Пошаровий шов рани (рис. 8). Інтраопераційна крововтрата мінімальна.

Макропрепарат видаленої пухлини (рис. 9). Пухлина неправильної округлої форми, еластичної консистенції, поверхня гладка. На розрізі пухлини виявлено множинні кісти, заповнені кашкоподібним кров'янистим вмістом, визначено хрящі та жирові включення.

Патоморфологія пухлини (рис. 10): зріла тератома (ступінь зрілості – 0), вміст пухлини представлений численними кістозними та залозистими компонентами, вистеленими респіраторним і багатошаровим плоским епітелієм. Виявлено наявність жирової та хрящової тканини, мозкової речовини, а також клубки товстостінних судин, оточених фіброзною капсулою, з виразною імбібіцією. Також наявні вогнища крововиливів, інфільтрації та деструкції.

Перебіг післяопераційного періоду вкрай тяжкий, ускладнений тромбозом дистальної частини черевної





**Рис. 10.** Патоморфологія пухлини: А, В – елементи стінки бронха із залозами, висланими епітелієм респіраторного типу та альвеолярними залишками (збарвлення гематоксилін-еозин; зб.  $\times 200$ ); С – багатошаровий плоский незроговілий епітелій із помірною інфільтрацією (збарвлення гематоксилін-еозин; зб.  $\times 100$ ); D – елементи хрящової та жирової тканини з клубками товстостінних судин (збарвлення гематоксилін-еозин; зб.  $\times 100$ )

аорти. На 8-му добу після операції виявлено виразну блідість шкірних покривів, на тлі неспокою дитини, тахікардію до 200 уд./хв, різницю середнього артеріального тиску на верхніх і нижніх кінцівках, яка становила 30 мм рт. ст. та більше, падіння  $SpO_2$  до 85%. Нижні кінцівки пастозні, бліді, їхня температура нижча від загальної на  $1^\circ$ . Відсутня пульсація на *arteria femoralis*, *arteria poplitea*, *arteria dorsalis pedis*.

Дитину транспортовано до ДУ НІССХ ім. М.М. Амосова для проведення комп'ютерної томографії (КТ) абдомінальної аорти з контрастуванням (рис. 11).

Консилиумом у складі серцево-судинного хірурга, інтервенційного хірурга, дитячого хірурга, дитячого анестезіолога визначено протипоказання до хірургічного лікування цього ускладнення, враховуючи значну протяжність ділянки тромбозу, значні ризики операції та тромбоемболічних ускладнень. Призначено консервативне лікування в об'ємі антикоагулянтної терапії гепарином 5–20 ОД/кг за годину під контролем активованого часткового тромбопластинового часу.

Після стабілізації загального стану, для подальшого лікування, дитину транспортовано до відділення реанімації та інтенсивної терапії ДУ «ІПАГ ім. акад.

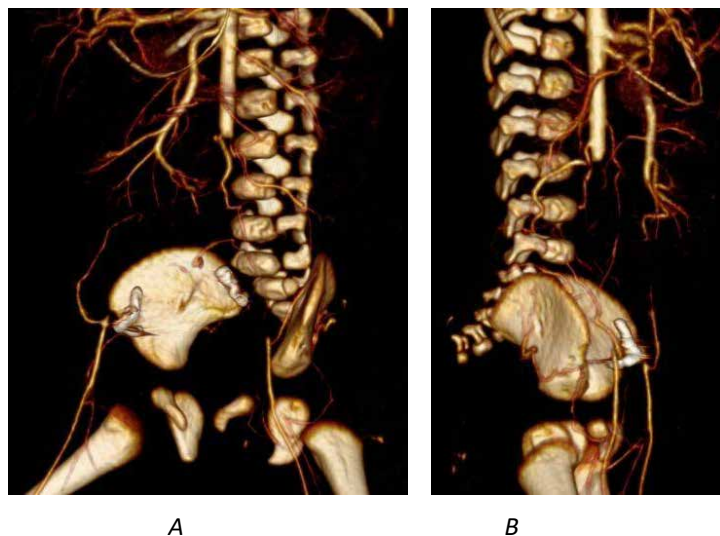
О.М. Лук'янової НАМН України». На 14-ту добу після тромбозу аорти терапію гепарином замінено на антиагрегантну – аспірином у дозуванні 5 мг/кг, терміном 6 місяців. Рана загоїлася первинним натягом (рис. 12). Альфа-фетопротеїн сироватки крові через 1 місяць після хірургічного втручання – 729 МО/мл (норма  $<15700$ ). У задовільному стані дитину виписано з клініки на 43-тю добу після операції.

Через 5 місяців після операції проведено дуплексне сканування артерій нижніх кінцівок (рис. 13).

Черевна аорта прохідна в усіх відділах. Супраренальний відділ:  $V_{ps}$  – 125 см/с, кровотік магістральний, інфраренальний відділ:  $V_{ps}$  – 134 см/с. Обидві загальні, зовнішні та внутрішні клубові артерії прохідні. Кровотік справа по загальних клубових артеріях:  $V_{ps}$  – 120 см/с, зліва:  $V_{ps}$  – 131 см/с. Загальні стегнові артерії, поверхневі стегнові артерії, глибокі артерії стегна, задні великогомілкові артерії, тильні артерії стопи і підколінні артерії, зліва та справа, візуалізуються, їхні просвіти вільні. Прохідність судин повна. Стан після повної реканалізації тромбозу інфраренального відділу аорти.

За результатами контрольного огляду дівчинки віком 5 місяців, стан добрий, скарги відсутні, психо-

## Clinical case



**Рис. 11.** 3D-реконструкція КТ-аортографії з контрастуванням, тотальний тромбоз низхідної аорти дистальніше arteria mesenterica inferior та клубових артерій з обох боків; стегнові артерії заповнені за рахунок колатеральних судин: А – фронтальна проєкція; В – сагітальна проєкція



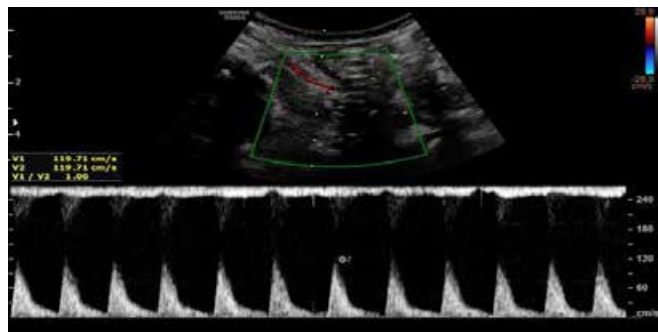
**Рис. 12.** Зовнішній вигляд післяопераційної рани на момент виписки зі стаціонару



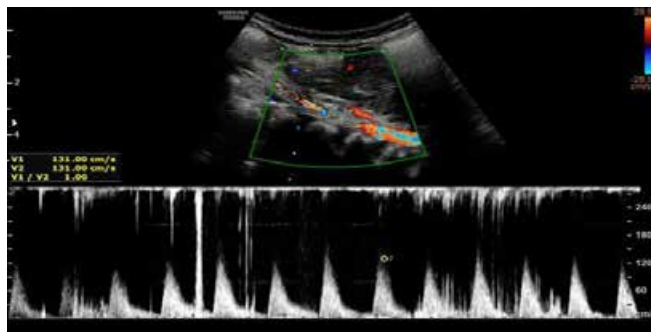
А



В



С



Д

**Рис. 13.** Дуплексне сканування артерій нижніх кінцівок. Визначено магістральний кровотік: А – інфраренальний відділ аорти; В – біфуркація аорти (поперечний скан); С – права зовнішня клубова артерія; Д – ліва зовнішня клубова артерія

фізичний розвиток відповідає віку (рис. 14). Альфа-фетопротейн сироватки крові через 6 місяців після хірургічного втручання – 41,1 МО/мл.

### Дискусія

За даними дослідників, причинами смертності новонароджених із ККТ у 70% випадків є геморагічні ускладнення [3]. Саме тому ключовим аспектом при резекції ККТ є деваскуляризація пухлини. Су-

динну анатомію ККТ уперше описано Clatworthy у 1961 р. Відтоді загальні уявлення щодо кровопостачання цієї пухлини є незмінними. Традиційно вважають, що основним джерелом кровопостачання ККТ є серединна крижова артерія [12]. Проте, крім цього, описано додаткове кровопостачання пухлини з системи внутрішніх і зовнішніх клубових артерій, а також гілок від глибокої артерії стегна [12]. Принцип деваскуляризації пухлини закладено в основу



мінінвазивних методик фетальної хірургії: алко-гольна, лазерна або радіочастотна абляції [15]. Проте вони не набули значного поширення.

Під час резекції зовнішнього компонента ККТ нами застосовано локальний доступ до живлячого судинного пучка пухлини, розміщеного під куприком [11]. Перев'язування і пересічення судин перед мобілізацією та видаленням пухлини дає змогу попередити інтраопераційні геморагічні ускладнення. У літературі для попередження вищезазначених ускладнень також описано методику лапароскопічного кліпування або перев'язування середньої крижової артерії [8,13].

Найсучаснішим підходом до деваскуляризації пухлини є передопераційна ендovasкулярна оклюзія живлячих артерій. На сьогодні описано 4 випадки застосування цієї техніки в новонароджених із ККТ [1,3,4,10]. Серед них 3 випадки при ККТ I типу [1,3,10] та 1 – при ККТ II типу [4]. У конкретному клінічному випадку нами вперше проведено передопераційну ендovasкулярну оклюзію живлячих артерій при ККТ III типу з масивними пресакральними і зовнішніми компонентами пухлини. Безпечність від можливих інтраопераційних геморагічних ускладнень при резекції масивної пухлини з критичною локалізацією забезпечено завдяки деваскуляризації магістральних джерел кровопостачання ККТ (arteria sacralis media, гілки arteria iliaca interna). При цьому інтраопераційна кровотрата була мінімальною.

Тромбоз аорти різної етіології – рідкісне ускладнення періоду новонародженості, що трапляється з частотою 5,1 на 100 000 [7]. Причини тромбозу дотепер залишаються невідомими майже в половині випадків [6]. Найчастіше це ускладнення виникає в результаті інфікування пупкового катетера. На другому місці – порушення коагуляції: дефіцит анти-тромбіну, протеїну С, протеїну S; мутація фактора V Лейдена [7]. Лікування при спонтанному аортальному тромбозі залежить від ступеня тяжкості: при легкому та середньому (відсутність пульсу на стегновій артерії, периферична ішемія, прохолодні, бліді або плямисті нижні кінцівки) рекомендовано антикоагулянтну терапію гепарином; при тяжкому тромбозі (параліч або гангрена нижніх кінцівок і/або системні ознаки ниркової недостатності, сепсис) – тромболізис або хірургічне втручання [6]. Наведений клінічний випадок – це вперше описаний епізод післяопераційного тромбозу аорти в пацієнта з ККТ. У конкретному випадку визначено середній ступінь тяжкості цього ускладнення та призначено екстрену антикоагулянтну терапію гепарином, а потім антиагрегантну – аспірином, що сприяло



**Рис. 14.** Зовнішній вигляд дитини через 5 місяців після операції

повній реканалізації тромбованого відділу аорти і відновленню повноцінного кровотоку в нижніх кінцівках.

## Висновки

Пренатальна діагностика, диспансеризація плода та постнатальне хірургічне лікування тяжкої форми ККТ з масивними пресакральним і зовнішнім компонентами в умовах єдиного медичного закладу – багатофункціонального перинатального центру, дають змогу скоординувати роботу різних фахівців на всіх етапах надання допомоги вагітній жінці та новонародженій дитині та отримати добрий функціональний результат при цій життєзагрожуючій патології.

У діагностуванні та лікуванні цієї патології необхідний науково обґрунтований, диференційований підхід, який передбачає: ранню (до 22 тижнів гестації) комплексну пренатальну діагностику для вибору раціональної тактики ведення вагітності; диспансеризацію плода з оцінюванням загального стану плода, динаміки патологічного процесу та темпів зростання пухлини впродовж гестації; розродження шляхом кесаревого розтину; постнатальну діагностику; передопераційну підготовку та хірургічне лікування.

Вперше описана доопераційна ендovasкулярна оклюзія живлячих артерій пресакрального та зовнішнього компонентів ККТ забезпечує деваскуляризацію пухлини та мінімізацію інтраопераційної кровотрати при одномоментній резекції високоваскуляризованого гігантського новоутворення.

## Clinical case

Адекватне оцінювання і раціональне консервативне лікування тяжкого ускладнення раннього післяопераційного періоду – тромбозу інфраренального відділу аорти, дало змогу ліквідувати життєзагрожує станом і домогтися повної реканалізації тромбованого відділу аорти і відновити повноцінний кровотік у нижніх кінцівках.

*Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.*

### References/Література

1. Cowles RA, Stolar CJ, Kandel JJ, Weintraub JL, Susman J, Spigland NA. (2006, Jun). Preoperative angiography with embolization and radiofrequency ablation as novel adjuncts to safe surgical resection of a large, vascular sacrococcygeal teratoma. *Pediatr Surg Int.* 22(6): 554–556.
2. Elgendy A, AbouZeid AA, El-Debeiky M, Mostafa M, Takrouney MH, Abouheba M et al. (2023, Sep 18). Management strategy and outcomes of sacrococcygeal teratoma – an Egyptian multicenter experience. *World J Surg Oncol.* 21(1): 294.
3. Guitart J, Teixidor M, Brun N, López S, Criado E, Romero N. (2020, Apr 1). Preoperative giant sacrococcygeal teratoma embolization in a newborn – A case report and a review. *Cir Pediatr.* 33(2): 95–98.
4. Lahdes-Vasama TT, Korhonen PH, Seppänen JM, Tammela OK, Iber T. (2011, Jan). Preoperative embolization of giant sacrococcygeal teratoma in a premature newborn. *J Pediatr Surg.* 46(1): e5–8.
5. Makin EC, Hyett J, Ade-Ajayi N et al. (2006). Outcome of antenatally diagnosed sacrococcygeal teratomas: single-center experience (1993–2004). *J Pediatr Surg.* 41 (2): 388–393.
6. Mulcaire-Jones JP, Bailly DK, Frank DU, Verma AR, Barney BJ, Siefkes HM. (2020, Jan). Spontaneous aortic thrombosis in neonates: a case report and review of literature. *Cardiol Young.* 30(1): 95–99.
7. Nagel K, Tuckuviene R, Paes B, Chan AK. (2010, May). Neonatal aortic thrombosis: a comprehensive review. *Klin Pediatr.* 222(3): 134–139. Epub 2010 May 31. doi: 10.1055/s-0030-1249662.

8. Osei H, Munoz-Abraham AS, Bates KS, Kim JS, Saxena S et al. (2019, Feb). Laparoscopic Division of Median Sacral Artery and Dissection of Types III and IV Sacrococcygeal Teratomas to Decrease Intraoperative Hemorrhagic Complications: Case Series and Review of the Literature. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 29(2): 272–277.
9. Phi JH. (2021, May). Sacrococcygeal Teratoma: A Tumor at the Center of Embryogenesis. *J Korean Neurosurg Soc.* 64(3): 406–413.
10. Rossi UG, Cariati M, Tomà P. (2013, Apr). Giant sacrococcygeal teratoma embolization. *Indian J Radiol Imaging.* 23(2): 145–147.
11. Sliepov OK, Perederii OV, Skrypchenko NY, Kotsovsky VV, Hladyshko OP, Grebinichenko GO. (2023). The first intravital case of diagnosis and treatment of a giant teratoma of the sacrococcygeal area, which exceeded the body weight of a newborn on 1.5 times. *Paediatric Surgery (Ukraine).* 3(80): 92–99. [Слепов ОК, Передерій ОВ, Скрипченко НЯ, Коцовський ВВ, Гладішко ОП, Гребініченко ГО. (2023). Перший прижиттєвий випадок діагностики і лікування гігантської тератоми крижово-куприкової ділянки, яка переважала масу тіла новонародженого в 1,5 рази. *Хірургія дитячого віку (Україна).* 3(80): 92–99]. doi: 10.15574/PS.2023.80.92.
12. Smith B, Passaro E, Clatworthy HW. (1961). The vascular anatomy of sacrococcygeal teratomas: Its significance in surgical management. *Surgery.* 49: 534–539.
13. Solari V, Jawaid W, Jesudason EC. (2011, May). Enhancing safety of laparoscopic vascular control for neonatal sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg.* 46(5): e5–7.
14. Van Heurn LJ, Coumans ABC, Derikx JPM, Bekker MN, Bilardo KM, Duin LK et al. (2021, Oct). Factors associated with poor outcome in fetuses prenatally diagnosed with sacrococcygeal teratoma. *Prenat Diagn.* 41(11): 1430–1438.
15. Van Mieghem T, Al-Ibrahim A, Deprest J, Lewi L, Langer JC, Baud D et al. (2014, Jun). Minimally invasive therapy for fetal sacrococcygeal teratoma: case series and systematic review of the literature. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 43(6): 611–619.
16. Zvizdic Z et al. (2023, Mar). A Long-Term Outcome of the Patients with Sacrococcygeal Teratoma: A Bosnian Cohort. *Turk Arch Pediatr.* 58(2): 168–173.

### Відомості про авторів:

**Слепов Олексій Костянтинівич** – д.мед.н., проф., чл.-кор. НАМН України, лауреат Національної премії України імені Б. Патона, засл. лікар України, керівник Центру неонатальної хірургії вад розвитку та їх реабілітації ДУ «ІПАГ ім. акад. О.М. Лук'янової НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8; тел. +38 (044) 483-62-28. <https://orcid.org/0000-0002-6976-1209>.

**Передерій Олександр Володимирович** – аспірант ДУ «ІПАГ ім. акад. О.М. Лук'янової НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8; тел. +38 (044) 483-62-28. <https://orcid.org/0009-0001-7531-8537>.

**Гребініченко Ганна Олександрівна** – д.мед.н., зав. відділення медицини плода ДУ «ІПАГ ім. акад. О.М. Лук'янової НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8; тел. +38 (044) 483-62-28. <https://orcid.org/0000-0003-4391-6724>.

**Скрипченко Наталія Яківна** – д.мед.н., проф., засл. лікар України, зав. відділення впровадження та вивчення ефективності сучасних медичних технологій в акушерстві та перинатології ДУ «ІПАГ ім. акад. О.М. Лук'янової НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8; тел. +38 (044) 483-62-28. <https://orcid.org/0000-0003-2849-8499>.

**Дітківський Ігор Олександрович** – ендovasкулярний хірург, зав. відділення рентгеноваскулярних методів лікування вроджених і набутих вад серця ДУ «НІССХ ім. М.М. Амосова НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. Амосова, 6; тел.: +38(044) 275-61-48. <https://orcid.org/0000-0001-8768-3307>.

**Раад Таммо** – к.мед.н., в. о. завідувача відділення променевої діагностики, ДУ «Науково-практичний медичний центр дитячої кардіології та кардіохірургії МОЗ України». Адреса: м. Київ, вул. В'ячеслава Чорновола, 28/1; тел. +38 (044) 238 7807. <https://orcid.org/0000-0001-7506-9449>.

**Дейнега Марина Ігорівна** – лікар-патологоанатом ДУ «ІПАГ ім. акад. О.М. Лук'янової НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди 8; тел. +38(044) 483-62-28. <https://orcid.org/0000-0001-8140-029X>.

Стаття надійшла до редакції 11.03.2024 р., прийнята до друку 14.05.2024 р.