

УДК 617.53–006.2–031.82–053.31–036–089

О.О. Калінчук¹, О.М. Кулик², А.О. Дворакевич¹, А.І. Карпів²

Тактика лікування гігантської тератоми шиї в новонародженої дитини: клінічний випадок

¹Перше клінічне об'єднання Львова «Лікарня Святого Миколая», Україна
²Львівський національний медичний університет імені Данила Галицького, Україна

Paediatric Surgery(Ukraine).2024.2(83):107-111; doi 10.15574/PS.2024.83.107

For citation: Kalinchuk OO, Kulyk OM, Dvorakevych AO, Karpiv AI. (2024). The treatment strategy for giant neck teratoma in newborns: clinical case. Paediatric Surgery (Ukraine). 2(83): 107-111; doi: 10.15574/PS.2024.83.107.

У діагностуванні тератоми провідне місце посідає ультразвукове обстеження, скринінг, що проводиться ще в період внутрішньоутробного розвитку плода. Рання діагностика тератоми – це запорука успішного результату її лікування. У літературних джерелах наведено досить мало інформації про детальне ведення новонароджених із гігантською тератомою шиї, особливо щодо підготовки пацієнта до радикальної операції.

Мета – на підставі клінічного випадку висвітлити тактику хірургічного лікування гігантської тератоми шиї в новонародженої дитини з використанням ЕХІТ-процедури (внутрішньоутробне лікування для встановлення функціонуючого дихального шляху) під контролем ангіографії перед радикальним видаленням пухлини, що дає змогу зберегти безпечну вентиляцію легень і безпечну, ефективну підтримку серцево-судинної системи.

Клінічний випадок описує діагностування та лікування новонародженої з гігантською тератомою шиї. Дитина перебувала на лікуванні в Першому клінічному об'єднанні Львова «Лікарня Святого Миколая». Пухлину діагностовано внутрішньоутробно. Дівчинці проведено ЕХІТ-процедуру, інтубацію трахеї. На третю добу після народження виконано селективну ангіографію, емболізацію гілок сонної артерії. На четверту добу проведено оперативне втручання з приводу видалення пухлини, яку вдалося видалити радикально, з крововтратою до 50 мл. На п'яту добу хвору переведено зі штучної вентиляції легень на самостійне дихання, забрано дренаж. Післяопераційна рана загоїлася без запальних змін.

Висновки. З метою діагностування можливих порушень формування плода обов'язковим є проведення пренатального скринінгу з визначенням альфа-фетопротеїну крові матері. ЕХІТ-процедура дала змогу зберегти безпечну вентиляцію легень і безпечну, ефективну підтримку серцево-судинної системи. Селективна ангіографія допомогла оцінити кровоплин у басейнах внутрішньої сонної артерії. Емболізація гілок зовнішньої сонної артерії, які васкуляризували пухлину, сприяла зменшенню загальної крововтрати до 50 мл. Видалення пухлини було радикальним, що не потребувало в подальшому спеціального лікування.

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

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

Ключові слова: тератома, новонароджена дитина, оперативне втручання.

The treatment strategy for giant neck teratoma in newborns: clinical case

O.O. Kalinchuk¹, O.M. Kulyk², A.O. Dvorakevych¹, A.I. Karpiv²¹The first clinical Lviv association «St. Nicholas hospital», Ukraine²Danylo Halytsky Lviv National Medical University, Ukraine

Teratoma can be diagnosed with ultrasound examination and screening, which is carried out in intrauterine period of the fetal development. Early diagnostics of the pathology is of the great importance of its treatment. The detailed management of newborns with giant neck teratoma have not been found in current literature. Furthermore, there is no information concerning preparation of the patient for the radical operation.

Clinical case

The aim is to present the clinical case of surgical treatment of giant neck teratoma in newborn child using EXIT-procedure (intrauterine treatment to establish a functioning airway) and angiography before the radical excision of the tumor.

The **clinical case** describes the diagnostics and treatment of newborn child with giant neck teratoma, who was taken to the first clinical Lviv association «St. Nicholas hospital». The tumor was diagnosed intrauterine. The child underwent EXIT-procedure. Selective angiography and embolization of carotid branches were carried out on third day after birth. The surgical intervention regarding the removal of the tumor, which was removed radically with blood loss up to 50 ml, was performed on fourth day after birth.

Conclusions. Prenatal screening with alpha-protein detection in mother blood is essential for diagnostics of probable pathologies of the fetal development. EXIT-procedure has led to save lung ventilation and effective support of the cardiovascular system. The selective angiography allowed to assess the bloodstream within branches of the internal carotid artery. The embolization of the branches of the external carotid artery, which vascularized the tumor, led to minimization of the blood loss up to 50 ml. As the removal of tumor was radical, further specialized treatment was not needed.

The research was carried out in accordance to principles of the Helsinki declaration. The informed consent of the child's parents was given for conducting the research.

The authors declare no conflict of interest.

Keywords: teratoma, newborn child, surgical intervention.

Тератома як пухлина формується з епітелію гонад, що є початковою базою для утворення і подальшого розвитку всіх тканин організму. Під дією генетичних, соматичних, трофобластичних факторів поліпотентний епітелій здатний диференціюватися в доброякісні та злоякісні новоутворення. Пухлини прагнуть локалізуватися в епітелії статевих залоз плода – яєчниках або яєчках, однак тератоми набагато частіше за інші різновиди герміногенних утворень розташовуються і в інших зонах, що обумовлено затримкою, повільним просуванням клітин ембріонального епітелію до генетично певних зон закладки гонад [2,9]. Основним фактором виникнення вважається патологічний розвиток тканин майбутнього плода. Це порушення стає причиною того, що така пухлина містить ознаки деяких органів, які за природою не повинні входити в анатомічну будову того або іншого ураженого органа. Нерідко тератома містить невеликі елементи, частинки шкіри, волосся, м'язів, нервової або лімфатичної тканини. На сьогодні до кінця не з'ясовані причини виникнення тератом, однак ця пухлина починає формуватися під час вагітності, тому можна говорити негативний вплив різноманітних факторів на жінку, що виношує дитину.

У діагностуванні тератоми провідне місце посідає ультразвукове дослідження (УЗД), скринінг, що проводиться ще в період внутрішньоутробного розвитку плода. Раннє встановлення діагнозу тератоми – це запорука успішного результату її лікування. УЗД дає змогу виявити пухлину, місце її локалізації, форму і розмір, а також структуру, що є одним із параметрів визначення злоякісного або доброякісного характеру новоутворення. Крім того, УЗД здатне виявити можливе метастазування пухлини.

Діагностування тератоми передбачає такі методи і процедури [7]:

- рентгенодіагностика виконується як оглядовий, двопроєкційний метод, ангиографія;

- комп'ютерна томографія дає змогу уточнити, конкретизувати наявність метастазів;

- біопсія проводиться за допомогою пункції; далі матеріал вивчається мікроскопічно, що допомагає визначити характер новоутворення, ступінь його злоякісності;

- аналіз крові на рівень альфа-фетопротеїну і хоріонічного гонадотропіну проводиться за показаннями і є уточнювальним методом, оскільки пухлина здатна синтезувати ембріональний білок і гормон плаценти.

Лікування тератоми в 90% здійснюється хірургічним шляхом [1,4].

У рідкісних випадках аномалії плода (гігантські тератоми, які локалізуються в ділянці шиї) можуть закупорювати дихальні шляхи. За такої ситуації дитина почувається добре аж до пологів, оскільки плацента виконує функцію легенів, але коли малюк народжується і намагається зробити перший вдих, то не може наповнити легені повітрям, якщо плацента відшаровується, малюк не має можливості отримати кисень у свій організм і потребує екстрених заходів, щоб залишитися живим.

Внутрішньоутробне лікування (EXIT) належить до спеціальної методики, при якій дитина народжується через розріз у матці, а перед відділенням від плаценти встановлюють функціонуючий дихальний шлях. Для цього матку тримають у розслабленому стані, щоб запобігти відшаруванню плаценти, даючи змогу дитині безперервно отримувати кисень від матері, доки її дихальні шляхи не будуть захищені. Проведення процедури EXIT може врятувати немовлят в умовах, коли є підозра на критичне обмеження дихальних шляхів перед пологами [3,5,6,8].

Мета дослідження – на підставі клінічного випадку висвітлити тактику хірургічного лікування гігантської тератоми шиї в новонародженій дитині з використанням EXIT-процедури (внутрішньо-

утробне лікування для встановлення функціонуючого дихального шляху) під контролем ангіографії перед радикальним видаленням пухлини, що дає змогу зберегти безпечну вентиляцію легень і безпечну, ефективну підтримку серцево-судинної системи.

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

Клінічний випадок

Дівчинка Х. народилася в пологовому відділенні Першого територіального медичного об'єднання м. Львова «Лікарня Святого Миколая» шляхом планового кесаревого розтину з масою тіла 3880 г у терміні гестації 38 тижнів. Стан новонародженої за шкалою Апгар оцінено 4 бали. Встановлено діагноз «Вроджена вада розвитку плода: Тератома шії з клінічними ознаками компресії трахеї», дитину для проведення подальших обстежень та лікування переведено до відділення інтенсивної терапії новонароджених (ВАІТН).

За результатами збирання інформації про перебіг вагітності мами виявлено, що під час вагітності 9 тижнів) мама перехворіла на вітряну віспу. В анамнезі – хронічний тонзиліт. За даними пренатального скринінгу з визначенням альфа-фетопротеїну крові матері встановлено зростання його рівня від 3000 МО/мл (з другого триместру вагітності) до 6000 МО/мл (в останній триместр вагітності).

За результатами пренатального УЗД у плода діагностовано пухлиноподібний утвір у ділянці шії. Проведено магнітно-резонансну томографію плода.

Загальний стан дитини після народження був тяжким. У пологовому залі новонародженій проведено ЕХІТ-процедуру, інтубацію трахеї і штучну вентиляцію легень (ШВЛ) мішком Амбу F_sO₂ 30%, торбекс. У віці 25 хвилин дитину для подальшого лікування переведено до ВАІТН Першого клінічного об'єднання Львова «Лікарня Святого Миколая».

На момент госпіталізації до реанімаційного відділення стан дитини розцінено як тяжкий. На огляд дівчинка реагувала мляво. Стан свідомості дитини збережений. Фізіологічні рефлекси пригнічені. Дівчинку приєднали до оксигенотерапії ШВЛ апаратом «Avea» (рис. 1).

Вигодовували ентерально зондом грудним молоком.

Призначено лабораторні та інструментальні обстеження.

У загальному аналізі крові виявлено незначний лейкоцитоз.

У біохімічному аналізі крові та аналізі сечі не виявлено патологічних змін.



Рис. 1. Новонароджена дитина з тератомою шії

Нейросонографія: ознаки гіпоксично-ішемічного ураження головного мозку.

УЗД: тератома ділянки шії справа великих розмірів.

Електрокардіограма: синусова брадикардія. Правовограма. Порушення процесів реполяризації дифузного характеру. QTc=423 мс.

На комп'ютерній томографії м'яких тканин шії, органів грудної порожнини з контрастуванням виявлено ознаки масивного гетерогенного (кісточно-солідного) утвору передньо-бокової поверхні шії та частково нижньої частини обличчя праворуч із компресією судин. Неонатальний пневмомедіастинум (Spinnaker-Sail Sign). Дивертикул Коммерелля та відкрита артеріальна протока.

На третю добу дитині проведено селективну ангіографію. Через встановлений у ліву стегнову артерію інтродюсер (4F) провідниковим катетером «Glide Cath 4F» катетеризовано ліву підключичну, ліву загальну сонну, праву загальну сонну артерії (СА) та плечо-головний стовбур. При введенні контрасту в ліву хребтову артерію (ХА) контрастовано всі судини заднього півкільця, середню мозкову артерію (СМА) і передню мозкову артерію (ПМА) справа. При введенні контрасту в ліву загальну сонну артерію (СА) контрастовано обидві СМА і обидві ПМА. Основне кровопостачання пухлини забезпечено зі щитошій-

Clinical case



Рис. 2. Дитина після оперативного видалення тератоми шиї

ного стовбура справа та поверхневих гілок із зовнішньої СА справа. Незначні колатералі з правої ХА та лівого щитошийного стовбура. Селективно закатетеризовано щитошийний стовбур справа і тотально емболізовано його емболами «Embozen 400 мкм» і спіраллю «VorX Diamond» 5×5,5×2×58 мм, катетер переведено в зовнішню СА справа і заемболізовано її спіраллю Tornado 5 мм × 5 см. Колатералі вирішено не емболізувати. Інструменти видалено із судинного русла. Проведено гемостаз. Пульсацію простежено на обох стопах.

На наступну (четверту) добу дитині виконано оперативне втручання з приводу видалення пухлини. Проведено широкий поперечний розріз шкіри на передньо-боковій поверхні шиї. Пошарове розкриття шкіри, підшкірної клітковини до місця щільної капсули пухлини. Капсула мала множинні кістозні компоненти розміром 20×10×10 см. Відсепаровано утвір від оточуючих тканин і судинно-нервового пучка. Дно пухлини прилягало до передньої стінки трахеї (трахеомаліяція кілець трахеї). При виділенні пухлинного утвору в просвіті судин візуалізовано закатетеризований спіраллю щитошийний стовбур справа і заемболізовану спіраллю Tornado зовнішню СА справа. Періодично проведено контроль гемостазу. Новоутворення видалено та подано на патогістологічне дослідження. Встановлено трахеостому (розмір 3) на межі трахеомаліяції – збережені кільця трахеї, фіксовано на передній поверхні шкіри шиї. Висічено надлишки шкіри та проведено пластику шкірно-м'язовим клапотом передньо-бокової ділянки шиї. Встановлено дренаж у дно рани, який фіксували до бокової поверхні шкіри. Рану пошарово ушили. Шкіру ушито Prolen 4–0 обвивним швом. Дренаж під'єднано до сільфо Редон-гармошки (рис. 2).

Патологогістологічний висновок. Зріла тератома: множинні кісти вистелені бронхіальним і призматичним епітелієм; лімфоїдна тканина, виражений судинний компонент; мозкова тканина.

У післяопераційному періоді дитині рекомендовано ентеральне харчування, знеболювання, інфузійну терапію з урахуванням моніторингу рівня електролітів і газів крові, антибіотикотерапію (тієнам, ванкоміцин), альбумін 2 доби).

На п'яту добу хвору переведено із ШВЛ на самостійне дихання, забрано дренаж.

Післяопераційна рана загоїлася без запальних змін.

Обговорення

На підставі клінічного випадку детально висвітлено нашу тактику хірургічного лікування гігантської тератоми шиї в новонародженій дитині з використанням EXIT-процедури та селективної ангіографії перед радикальним видаленням пухлини, що дало змогу зберегти безпечну вентиляцію легень і безпечну, ефективну підтримку серцево-судинної системи.

Хороший результат для матері та плода залежить від спільного планування команди експертів. Окрім команди фетальної терапії, під час пологів мають бути присутні спеціалісти з акушерства та дитячої анестезіології, неонатології та відповідних педіатричних хірургічних спеціальностей, щоб забезпечити дитині безпечний перехід до позаутробного життя.

Висновки

Проведення пренатального скринінгу з визначенням альфа-фетопротеїну крові матері є обов'язковим. Відхилення від норми альфа-фетопротеїну є маркером порушень формування плода і появи злякисних захворювань, які можуть привести до внутрішньоутробної загибелі плода або потребувати переривання вагітності за медичними показаннями.

EXIT-процедура дала змогу зберегти безпечну вентиляцію легень і безпечну, ефективну підтримку серцево-судинної системи.

Селективна ангіографія дала можливість оцінити кровоплин у басейнах внутрішньої сонної артерії, що допомогло перев'язати сонну артерію під час оперативного втручання (за потреби) без розвитку ішемічних ускладнень зі створенням коллатерального кровоплину в судинах головного мозку.

Емболізація гілок зовнішньої сонної артерії, які васкуляризували пухлину, сприяла зменшенню загальної крововтрати до 50 мл.

Видалення пухлини було радикальним, що не потребувало в подальшому спеціального лікування.

Трахеостомію проведено як необхідний захід у зв'язку з трахеомаліцією внаслідок компресії пухлиною стінки трахеї у внутрішньоутробному періоді.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

References/Література

1. Arlikar JD, Mane SB, Dhende NP, Sanghavi Y, Valand AG, Butale PR. (2009, Mar). Fetus in fetu: two case reports and review of literature. *Pediatric Surgery International*. 25(3): 289–292. doi: 10.1007/s00383-009-2328-8. PMID 19184054.
2. Blum B, Benvenisty N. (2008). The tumorigenicity of human embryonic stem cells. *Adv Cancer Res*. 100: 133–58. doi: 10.1016/S0065-230X(08)00005-5. PMID: 18620095.
3. Joshi D, Stellon M, Antony K, Beninati M, Luks FI, Puricelli M, Lobeck IN. (2023). Indications, Resource Allocation, and Outcomes Associated with Ex-Utero Intrapartum Treatment Procedures: A North American Fetal Therapy Network Survey. *Fetal Diagn Ther*. 50(5): 376–386.
4. Mohta A, Khurana N. (2011, Apr 5). Fetus-In-Fetu or Well-Differentiated Teratoma – A Continued Controversy. *Indian Journal of Surgery*. 73(5): 372–374. ISSN 0972–2068. doi: 10.1007/s12262-011-0251-4. PMID 23024547.
5. Mosquera MS, Yuter S, Flake AW. (2023, Oct). Perinatal management of the anticipated difficult airway. *Semin Fetal Neonatal Med*. 28(5): 101485.
6. Oré Acevedo JF, Ventura Laveriano W, Alvarado Zelada J. (2023, Jan-Feb). Case report: EXIT procedure in cervical teratoma during pregnancy. *Acta Otorrinolaringol Esp (Engl Ed)*. 74(1): 59–62.
7. Peiro JL, Sbragia L, Scorletti F, Lim FY, Shaaban A. (2016 Jul). Management of fetal teratomas. *Pediatr Surg Int*. 32 (7): 635647. doi: 10.1007/s0038301638923.
8. Sung S, Mahdy H. (2023). StatPearls [Internet]. StatPearls Publishing; Treasure Island (FL): Jul 9, 2023. Cesarean Section.
9. Uri B-D, Nissim B. (2011, Mar 10). The tumorigenicity of human embryonic and induced pluripotent stem cells. *Nature Reviews Cancer*. 11(4): 268–277. ISSN 1474–175X. doi: 10.1038/nrc3034. PMID 21390058.

Відомості про авторів:

Калінчук Олександр Олександрович – медичний директор Першого клінічного об'єднання Львова «Лікарня Святого Миколая». Адреса: м. Львів, вул. П. Орлика, 4. <https://orcid.org/0000-0002-1918-0035>.

Кулик Олена Миколаївна – д.мед.н., проф. каф. дитячої хірургії ЛНМУ ім. Д. Галицького. Адреса: м. Львів, вул. Пекарська, 69. <https://orcid.org/0000-0001-7639-6871>.

Дворакевич Андрій Орестович – к.мед.н., керівник Центру хірургії, заст. медичного директора з хірургічної роботи Першого клінічного об'єднання Львова «Лікарня Святого Миколая». Адреса: м. Львів, вул. П. Орлика, 4. <https://orcid.org/0000-0003-1509-8525>.

Карнів Андрій Ігорович – лікар судово-медичний експерт. Адреса: м. Львів, вул. Пекарська, 61.

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