

УДК 617.559-006.2-053.31-089.87-06

В.П. Сорока

Рідкісне спостереження резекції гігантської крижово-куприкової тератоми, ускладненої масивною кровотечею, у новонародженої дитини

Центр неонатальної хірургії вад розвитку та їх реабілітації ДУ «Всеукраїнський центр материнства та дитинства НАМН України», м. Київ

Paediatric Surgery (Ukraine). 2025. 1(86): 137-140. doi: 10.15574/PS.2025.1(86).137140

For citation: Soroka VP. (2025). A rare observation of resection of giant sacrococcygeal teratoma complicated by massive bleeding in a newborn child. Paediatric Surgery (Ukraine). 1(86): 137-140. doi: 10.15574/PS.2025.1(86).137140.

Мета – проаналізувати й описати досвід хірургічного лікування гігантської крижово-куприкової тератоми, ускладненої масивною кровотечею, у новонародженої дитини.

Клінічний випадок. Наведено рідкісне клінічне спостереження резекції гігантської крижово-куприкової тератоми, ускладненої масивною кровотечею, у новонародженої дитини.

Висновки. За наявності негативних прогностичних чинників, пов'язаних із ризиком розвитку гемодинамічних і геморагічних ускладнень, доцільно розглянути можливість хірургічного лікування в ранньому неонатальному періоді для попередження фатальних наслідків. Описана двохетапна хірургічна тактика лікування при життєзагрозливій масивній кровотечі дала змогу ліквідувати грізне ускладнення, стабілізувати стан дитини, забезпечити ефективну передопераційну підготовку і виконати подальшу радикальну резекцію пухлини з добрим післяопераційним результатом.

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

Автор заявляє про відсутність конфлікту інтересів.

Ключові слова: гігантська крижово-куприкова тератома, ускладнення при тератомах, масивна кровотеча, резекція тератоми, новонароджена дитина.

A rare observation of resection of giant sacrococcygeal teratoma complicated by massive bleeding in a newborn child

V.P. Soroka

Center for neonatal surgery for malformations and their rehabilitation of SI «Ukrainian center of maternity and childhood of the NAMS of Ukraine», Kyiv

Aim – is to analyze and describe the experience of surgical treatment of giant sacrococcygeal teratoma (SCT) complicated by massive bleeding in a newborn child.

Clinical case. A rare clinical observation of resection of giant sacrococcygeal teratoma complicated by massive bleeding in a newborn child is presented.

Conclusions. In the presence of negative prognostic factors associated with the risk of hemodynamic and hemorrhagic complications, it is advisable to consider the possibility of surgical treatment in the early neonatal period to prevent fatal consequences. A 2-stage surgical treatment tactic for life-threatening massive bleeding is described, which allowed to eliminate a formidable complication, stabilize the child's condition, ensure effective preoperative preparation and perform subsequent radical resection of the tumor with a good postoperative result. 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, complications of teratoma, massive bleeding, newborn child.

Clinical case

Вступ

Крижово-куприкова тератома (ККТ) – рідкісна життєзагрозна природжена вада розвитку, рівень поширеності якої становить від 1 на 15 000 до 28 500 новонароджених [11]. Упровадження пренатального скринінгу і диспансеризації плода сприяє підвищенню рівня ранньої пренатальної діагностики ККТ і збільшує шанси на виживання новонародженого [12]. Однак значна частина дітей із ККТ помирає в антенатальному і неонатальному періодах унаслідок внутрішньоутробних або постнатальних ускладнень. Антенатальна смертність плодів із пренатально діагностованими ККТ становить 32,1% [15]. Рівень постнатальної летальності коливається в межах від 13% до 16% [7]. За даними досліджень, до чинників, що погіршують прогноз виживаності, належать переважання солідного компонента ККТ, швидкий її ріст, значна васкуляризація, підвищені пухлинно-корпоральний (tumor-fate ratio (TFR)) і пухлинно-краніальний (tumor volume-head volume (TV:HV)) індекси [13, 16]. Серед причин смертності дітей більш старшого віку ключову частку становить злаякісна трансформація ККТ [7]. За даними дослідників, 70% доброякісних і незрілих пухлин малігнізуються у віці до 1 року [15]. Натомість у структурі смертності новонароджених із ККТ у неонатальному періоді, безумовно, переважають ускладнення гемодинамічного і геморагічного характеру: масивні кровотечі внаслідок розриву або виразкування оболонок пухлини й серцева недостатність. У літературі точиться дискусія стосовно тактики хірургічного лікування новонароджених із ККТ для попередження до- та інтраопераційних ускладнень, що обумовлює актуальність дослідження.

Мета дослідження – проаналізувати й описати досвід хірургічного лікування гігантської ККТ, ускладненої масивною кровотечею, у новонародженої дитини.

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

Клінічне спостереження

Вагітну жінку, віком 27 років, II вагітність, II пологи, скеровано до відділення медицини плода ДУ «Інститут педіатрії, акушерства і гінекології імені акад. О.М. Лук'янової НАМН України», на 36-му тижні гестації з діагнозом «Природжена вада розвитку плода: крижово-куприкова тератома». Під час огляду на рівні куприка візуалізовано гетерогенне утворення розмірами 11,3×9,5×9,4 см, визначено

збільшену кількість навколоплідних вод. Перинатальним консилиумом у складі спеціаліста з пренатальної ультразвукової діагностики (УЗД), дитячого хірурга та акушера-гінеколога надано інформацію щодо можливих перинатальних і віддалених наслідків при цій патології.

Вагітну госпіталізовано до акушерської клініки Інституту для розродження шляхом планового кесаревого розтину в терміні 39 тижнів гестації. Розродження виконано в присутності бригади дитячих хірургів і дитячих анестезіологів-реаніматологів.

Новонароджена дівчинка народилася масою тіла 4370 г, зростом 50 см, окружністю голови 34 см, окружністю грудної клітки 33 см. Оцінка за шкалою Апгар – 6/7 балів. З перших секунд життя проведено катетеризацію двох периферичних вен, шлунка, сечового міхура. Локально: у крижово-куприковій ділянці візуалізовано утворення розмірами 12,0×13,0 см, окружністю 39 см. Пальпаторно: утворення щільної неоднорідної консистенції, у центрі – шкіра темно-вишнева, виразна судинна ін'єкція; по нижньому полюсу ККТ – ділянка некрозу розмірами 1,0×1,5 см. Дитину в умовах транспортного кювезу доставлено до відділення дитячої реанімації та інтенсивної терапії. Новонародженій проведено комплекс інструментальних (оглядову цифрову Rõ-графію (органів грудної клітки, черевної порожнини, пухлини); нейросонографію; діафаноскопію пухлини) і лабораторних досліджень. Заплановано радикальне хірургічне втручання на початку пізнього неонатального періоду.

На 6-ту добу після народження стан дитини різко погіршився, виявлено генералізовану блідість шкірних покривів, критичне зниження гемодинамічних (артеріальний тиск – до 40/20 мм рт. ст., брадикардія – до 80/хв) і респіраторних (SpO_2 – 80%) показників, лабораторно (Hb – 45 г/л, Hct – 14%). На момент огляду крижово-куприкової ділянки виявлено профузну кровотечу з ерозованої судини (діаметр – до 3 мм) некротизованої ділянки ККТ. В умовах дитячої реанімації кровотечу зупинено механічним методом, із подальшим прошиванням судин «*ad mass*» П-подібними гемостатичними швами (об'єм крововтрати – 150 мл). Проведено інтубацію трахеї, розпочато штучну вентиляцію легень, виконано катетеризацію *v. subclavia dextra*, проведено замісну і гемостатичну терапію. Враховуючи тяжкість стану дитини, масивний об'єм крововтрати, наявність геморагічного шоку – дитині показано хірургічне втручання за життєвими показаннями після стабілізації загального стану. Операцію виконано за 19 год після зупинки кровотечі.

Особливості операції. Положення дитини: на животі з валиком під клубові кістки та плечовий пояс. Розсічено шкіру й м'які тканини. Ніжка пухлини проростає у верхівку куприка. Куприк мобілізовано, виконано його резекцію, проведено лігування живлячого судинного пучка ККТ. Етапно тупо і гостро, під контролем ендоректальної трубки, пухлину виділено в межах здорових тканин, відокремлено від прямої кишки, видалено єдиним блоком (розмірами 15,0×14,0×14,0 см). Виконано пластику м'язів тазового дна. Гемостаз по ходу операції. Леже пухлини дреновано. Пошаровий шов рани. Інтраопераційна крововтрата мінімальна.

Макроскопічний препарат: ККТ представлена численними кістозними компонентами, залозистою тканиною, включеннями кальцинатів, хрящів, маса – 700 г.

Патоморфологія пухлини: тератоїдна пухлина, вміст якої представлений численними кістозними та залозистими компонентами різного генезу, елементами бронхів, зрілою мезенхімою з вогнищами незрілих, недиференційованих клітин.

У післяопераційному періоді загальний стан дитини стабільний, дівчинку екстубовано на 2-гу післяопераційну добу, самостійне випорожнення виявлено на 2-гу післяопераційну добу, ентєральне харчування розпочато на 2-гу післяопераційну добу, із поступовим нарощуванням до фізіологічного об'єму до 8 післяопераційної доби. Післяопераційна рана загоїлася вторинним натягом.

Дитину виписано зі стаціонару на 25-ту післяопераційну добу, результат хірургічного лікування – добрий.

За даними дослідників, найтяжчим ускладненням і основною причиною смертності новонароджених із ККТ є геморагічний шок [2,3,7,9,14]. Рівень летальності унаслідок критичної крововтрати серед новонароджених із ККТ становить 3,8%, що складає більше однієї третини випадків у загальній структурі смертності дітей із цією патологією [7]. Описані методи запобігання інтраопераційним кровотечам шляхом деваскуляризації пухлини «vascular control», із лігуванням судин, що кровопостачають пухлину: *a. sacralis media*, *a. iliaca interna* [2]. У літературі наявні поодинокі повідомлення щодо застосування мініінвазивних методик: лапароскопічної деваскуляризації та ендоваскулярної оклюзії живлячої артерії [5,10]. Описано методику зупинки кровотечі шляхом перетискання черевної аорти вище за біфуркацію [1]. Окрім живлячої пухлини, судинні колатералі (здебільшого венозного походження) є додатковим джерелом кровотечі з ККТ [6]. Деякими авторами реко-

мендовано застосування ультразвукової енергії для зупинки кровотечі та дисекції ККТ із найбільш щадним впливом на прилеглі тканини [6].

Lohfa B. Chirdan (2009, Нігерія) описано два випадки інтраопераційної летальності при резекції ККТ, зумовлені відсутністю досвіду анестезіологічного забезпечення [4]. За наявності геморагічного шоку, масивної кровотечі, інтраопераційно доцільне застосовувати методику екстракорпоральної мембранної оксигенації з гіпотермічною гіпоперфузією [8].

У конкретному клінічному випадку, враховуючи критичний стан дитини, застосовано двохетапну тактику хірургічного лікування новонародженої. На першому етапі виконано зупинку кровотечі механічним шляхом із подальшим накладанням глибоких гемостатичних П-подібних швів. Після стабілізації загального стану дитини, гемодинамічних і лабораторних показників виконано на другому етапі екстрєне хірургічне втручання – резекцію ККТ.

Наведєне клінічне спостереження – це рідкісний випадок критичного ускладнення в новонародженій дитини з ККТ – масивної кровотечі, унаслідок виразкування оболонки пухлини, у доопераційному періоді. У конкретному випадку застосовано двохетапну хірургічну тактику лікування, що дало змогу ліквідувати грізне ускладнення, стабілізувати стан дитини і виконати радикальну резекцію пухлини з добрим післяопераційним результатом.

Висновки

У плануванні діагностування й лікування гігантської ККТ необхідний обґрунтований, диференційований підхід залежно від: характеристик пухлинного процесу, локалізації, розмірів, росту, морфологічної структури, васкуляризації пухлини, цілісності оболонки новоутворення.

За наявності негативних прогностичних чинників, пов'язаних із ризиком розвитку гемодинамічних і геморагічних ускладнень, доцільно розглянути можливість хірургічного лікування в ранньому неонатальному періоді для попередження фатальних наслідків.

Описана двохетапна хірургічна тактика лікування при життєзагрозливій масивній кровотечі дає змогу ліквідувати грізне ускладнення, стабілізувати стан дитини, забезпечити ефективну передопераційну підготовку і виконати подальшу радикальну резекцію пухлини з добрим післяопераційним результатом.

Автор заявляє про відсутність конфлікту інтересів.

Clinical case

References/Література

1. Angel CA, Murillo C, Mayhew J. Experience with vascular control before excision of giant, highly vascular sacrococcygeal teratomas in neonates. *J Pediatr Surg* 1998;33:1840-2.
2. Bax NM, van der Zee DC. Laparoscopic clipping of the median sacral artery in huge sacrococcygeal teratomas. *Surg Endosc* 1998;12:882-3. Robertson FM, Crombleholme TM, 8. Frantz III ID, et al. Devascularization and staged resection of giant sacrococcygeal teratoma in the premature infant. *J Pediatr Surg* 1995;30:309-11.
3. Bond SJ, Harrison MR, Schmidt KG, Silverman NH, Flake AW, Slomick RN, Anderson RL, Warsof SL, Dyson DC (1990) Death due to high output cardiac failure in fetal sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 25: 1287-1291.
4. Chirdan LB, Uba AF, Pam SD, Edino ST, Mandong BM, Chirdan OO. Sacrococcygeal teratoma: clinical characteristics and long-term outcome in Nigerian children. *Ann Afr Med*. 2009 Apr-Jun;8(2):105-9
5. 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.
6. Kaneyama K, Yamataka A, Kobayashi H, Lane GJ, Itoh S, Kinoshita K, Miyano T. Giant, highly vascular sacrococcygeal teratoma: report of its excision using the ligasure vessel sealing system. *J Pediatr Surg*. 2004 Dec;39(12):1791-3.
7. Kremer ME, Wellens LM, Derikx JP, van Baren R, Heij HA, Wijnen MH, Wijnen RM, van der Zee DC, van Heurn LW. Hemorrhage is the most common cause of neonatal mortality in patients with sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg*. 2016 Nov;51(11):1826-1829. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2016.07.005. Epub 2016 Jul 27.
8. Lund DP, Soriano SG, Fauza D, et al. Resection of a massive sacrococcygeal teratoma using hypothermic hypoperfusion: a novel use of extracorporeal membrane oxygenation. *J Pediatr Surg* 1995;30: 1557-9.
9. Murphy JJ, Blair GK, Fraser GC. Coagulopathy associated with large sacrococcygeal teratomas. *J Pediatr Surg*. 1992 Oct;27(10):1308-10. doi: 10.1016/0022-3468(92)90282-c. PMID: 1403511.
10. 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.
11. Pauniah SL, Heikinheimo O, Vettenranta K, et al. High prevalence of sacrococcygeal teratoma in Finland – a nationwide population based study. *Acta Paediatr* 2013; 102(6):e251-6.
12. Swamy R, Embleton N, Hale J. Sacrococcygeal teratoma over two decades: birth prevalence, prenatal diagnosis and clinical outcomes. *Prenat Diagn* 2008;28(11): 1048-51.
13. Shue E, Bolouri M, Jelin EB, Vu L, Bratton B, Cedars E et al. (2013). Tumor metrics and morphology predict poor prognosis in prenatally diagnosed sacrococcygeal teratoma: a 25-year experience at a single institution. *J Pediatr Surg*. 48: 1225-1231.
14. Teitelbaum D, Teich S, Cassidy S, Karp M, Cooney D, Besner G. (1994). Highly vascularized sacrococcygeal teratoma: description of this atypical variant and its operative management. *J Pediatr Surg* 29: 98-101.
15. Van Heurn LJ, Coumans ABC, Derikx JPM, Bekker MN, Bilar-do 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. Epub 2021 Aug 5. doi: 10.1002/pd.6026.
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 автора:

Сорока Василь Петрович – к.мед.н., засл. лікар України, ДУ «Всеукраїнський центр материнства та дитинства НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8; тел. +38 (044) 483-62-28.

Стаття надійшла до редакції 18.11.2024 р., прийнята до друку 18.03.2025 р.