

ISSN 2311-4495
ISSN 2410-5155 (Online)
УДК 616-006.441:616.155.392:
616.34

КИСТОЗНЫЙ ПНЕВМАТОЗ КИШЕЧНИКА У ДЕТЕЙ С ГЕМАТОЛОГИЧЕСКИМИ ЗЛОКАЧЕСТВЕННЫМИ ЗАБОЛЕВАНИЯМИ (КЛИНИЧЕСКИЕ СЛУЧАИ)

Боровая А. А.¹, Уланова А. С.^{1,2}, Турабов И. А.^{1,2},
Митрофанов В. А.^{1,2}, Куликов А. С.^{1,2}

¹ Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Северный государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, Архангельск, Россия

² Государственное бюджетное учреждение здравоохранения Архангельской области «Архангельская областная детская клиническая больница имени П. Г. Выжлецова», Архангельск, Россия

Контактная информация:

Боровая Анастасия Алексеевна,
ФГБОУ ВО «Северный государственный
медицинский университет» Минздрава
России,
Троицкий пр., д. 51, Архангельск, Россия,
163069.
E-mail: anastas.fedotova97@gmail.com

Статья поступила в редакцию 03.05.2023
и принята к печати 19.09.2023.

Резюме

Кистозный пневматоз кишечника — редко встречающаяся патология в детской практике, сопровождающаяся неспецифической клинической картиной, что значительно затрудняет постановку данного диагноза. В литературе описаны единичные случаи развития подобного состояния у онкогематологических пациентов детского возраста. Кистозный пневматоз кишечника у такой группы пациентов может осложняться жизнеугрожающими состояниями, поэтому выбор правильной тактики ведения существенно влияет на выживаемость. В настоящей статье описаны 2 клинических случая, когда во время лечения онкологического заболевания развился кистозный пневматоз кишечника.

Ключевые слова: кистозный пневматоз кишечника, клинические случаи, лимфома, острый лейкоз.

Для цитирования: Боровая А.А., Уланова А.С., Турабов И.А., Митрофанов В.А., Куликов А.С. Кистозный пневматоз кишечника у детей с гематологическими злокачественными заболеваниями (клинические случаи). Трансляционная медицина. 2023;10(5):449-454. DOI: 10.18705/2311-4495-2023-10-5-449-454. EDN: LDWMSQ

INTESTINAL CYSTOUS PNEUMATOSIS IN CHILDREN WITH HEMATOLOGICAL MALIGNANT DISEASES (CLINICAL CASE)

Anastasiya A. Borovaya¹, Anna S. Ulanova^{1,2}, Ivan A. Turabov^{1,2}, Vyacheslav A. Mitrofanov^{1,2}, Alexander S. Kulikov^{1,2}

¹ Northern State Medical University, Arkhangelsk, Russia

² Arkhangelsk Regional Children's Clinical Hospital named after P. G. Vyzhletsov, Arkhangelsk, Russia

Corresponding author:

Anastasiya A. Borovaya,
Northern State Medical University,
Prospect Troitsky, 51, Arkhangelsk, Russia,
163069.
E-mail: anastas.fedotova97@gmail.com

Received 3 May 2023; accepted 19 September 2023.

Abstract

Intestinal cystous pneumatosis is a rare pathology in pediatric practice, accompanied by a nonspecific clinical picture, which greatly complicates the diagnosis. The literature describes isolated cases of the development of this condition in oncohematological patients of childhood. Intestinal cystous pneumatosis in them can be complicated by life-threatening conditions, and therefore the choice of the correct tactics for managing these patients significantly affects survival. This article describes 2 clinical cases when cystic pneumatosis of the intestine developed during the treatment of an oncological disease.

Key words: acute leukemia, clinical cases, cystic pneumatosis of the intestine, lymphoma.

For citation: Borovaya AA, Ulanova AS, Turabov IA, Mitrofanov VA, Kulikov AS. Intestinal cystous pneumatosis in children with hematological malignant diseases (clinical case). Translyatsionnaya meditsina=Translational Medicine. 2023;10(5):449-454. (In Russ.) DOI: 10.18705/2311-4495-2023-10-5-449-454. EDN: LDWMSQ

Список сокращений: КПК — кистозный пневматоз кишечника, КТ — компьютерная томография, УЗИ — ультразвуковое исследование.

Актуальность

Кистозный пневматоз кишечника (кишечная эмфизема, pneumatosis cystoides intestinalis) — редкое состояние, характеризующееся образованием множественных газосодержащих полостей в стенке кишки и, в ряде случаев, осложняющееся пневмоперитонеумом [1, 2]. Кисты могут располагаться в стенке тонкой кишки (субсерозные) и в толстой кишке (субмукозные) диаметром 0,5–10 см. Объем поражения может варьировать от локальных единичных булл до тотального поражения тонкой и/или толстой кишки [2]. Наиболее частой локализацией данного патологического процесса является толстая кишка (61,8 %), тонкая кишка поражается реже (15,4 %) [3].

Содержимым кишечных булл является воздух с высоким процентным содержанием водорода (до 50 %), иногда с небольшим количеством серозно-

го транссудата [2]. Предполагается, что кистозный пневматоз кишечника (КПК) возникает из-за повышения внутрикишечного давления и проникновения газа из просвета кишки в межтканевые щели [1]. По мнению других авторов, кисты появляются в результате деятельности газообразующих микроорганизмов, проникших в кишечную стенку, или возникают на фоне аномалий развития лимфатических сосудов кишечной стенки [4]. КПК, в некоторых случаях, является вторичным на фоне механических травм желудочно-кишечного тракта, аутоиммунных заболеваний, кишечных инфекций, иммуносупрессивных состояний (во время и после химиотерапии злокачественных опухолей и трансплантации гемопоэтических стволовых клеток). Предполагается, что применение противоопухолевых и таргетных препаратов может быть значимой причиной желудочно-кишечной токсичности [5–7].

Частыми симптомами при данной патологии являются: болевой абдоминальный синдром, вздутие живота, тошнота, рвота, диарея, тенезмы и потеря

веса, но ни один из этих симптомов не является специфичным [3, 6]. Для диагностики используются рентгенография и компьютерная томография брюшной полости с контрастным усилением или эндоскопия, которые позволяют обнаружить кисты или воздух в стенке кишечника (изменение кишки по типу «булыжной мостовой») [1, 6]. Тактика ведения данных пациентов основана на консервативном лечении (антибактериальная терапия, покой кишечника), к хирургическим методам прибегают при наличии пневмоперитонеума, возникшего при разрыве субсерозных кист [4, 6]. Отсутствие знаний об этой достаточно редкой патологии может привести к ненужным оперативным вмешательствам [1]. Авторы поставили перед собой задачу осветить особенности диагностики и терапии такой редкой патологии, как КПК, у детей с онкогематологическими заболеваниями, на основании представленных клинических случаев.

Обзор клинических случаев

Клинический случай 1: У мальчика Г., 3 лет, установлен диагноз: острый лимфобластный лейкоз. После начала индукционной полихимиотерапии по протоколу ALL-MB 2015 на 18 день была выявлена винкристиновая полинейропатия, проявляющаяся болями в нижних конечностях и нижнечелюстном суставе. Проводилась терапия прегабалином с положительной динамикой. На 23 день лечения отмечался болевой абдоминальный синдром, снижение аппетита, вздутие живота, задержка стула. Лабораторно: гематологическая токсичность 4 степени, повышение СРБ до 49 мг/л. Выполнена рентгенография брюшной полости, заподозрена инвагинация кишечника. Проведено

ультразвуковое исследование (УЗИ) брюшной полости — инвагинация кишечника не подтвердилась. Ситуация расценена как динамическая кишечная непроходимость на фоне винкристиновой полинейропатии. Была эскалирована антибактериальная и противогрибковая терапия: меронем, амикацин, флуконазол, метронидазол перорально. На 25 день от начала терапии отмечено ухудшение состояния: слабость, вялость, гипотензия 50/30 мм рт. ст., живот умеренно вздут, безболезненный, стул самостоятельный. Пациент переведен в отделение реанимации, где при выполнении УЗИ брюшной полости и компьютерной томографии (КТ) органов брюшной полости выявили: жидкость в брюшной полости асцитического характера, перераздутые петли кишечника, мелкие кисты, заполненные воздухом, в стенке кишки. В анализах крови гематологическая токсичность 4 степени: анемия 60 г/л, тромбоцитопения 11×10^9 , лейкопения 0.8×10^9 , гипоальбуминемия 24 г/л, а также нарастание уровня С-реактивного белка до 80 г/л, трансаминаз до 10 норм. Принято решение о проведении консервативного лечения в связи с тяжестью состояния пациента. На 26 день терапии — развитие септического состояния с прогрессированием полиорганной недостаточности с последующей остановкой сердечной деятельности, зафиксирована смерть. При аутопсии выявлены множественные некротические очаги в толстом кишечнике с выраженным бактериальным обсеменением и пневматозом (выделена *Klebsiella pneumonia*). Асцит-перитонит (рис. 1).

Клинический случай 2: У мальчика А., 9 лет, диагностирована Т-лимфобластная лимфома средостения. На 19 день терапии у ребенка появились боли



Рис. 1. Кистозный пневматоз кишечника у пациента Г. на аутопсии

Figure 1. Cystic pneumatosis of the intestine in patient G. at autopsy

в животе, склонность к запорам. На УЗИ брюшной полости патологии не выявлено. На 34 день от начала противоопухолевой терапии отмечено усиление болевого абдоминального синдрома. В общем анализе крови — гематологическая токсичность

2 степени за счет анемии, лейкоцитопении, повышение С-реактивного белка до 80 мг/л. Выполнена КТ органов брюшной полости с внутривенным контрастированием, где выявлены отечные, утолщенные до 4,6 мм стенки тощей кишки с единич-

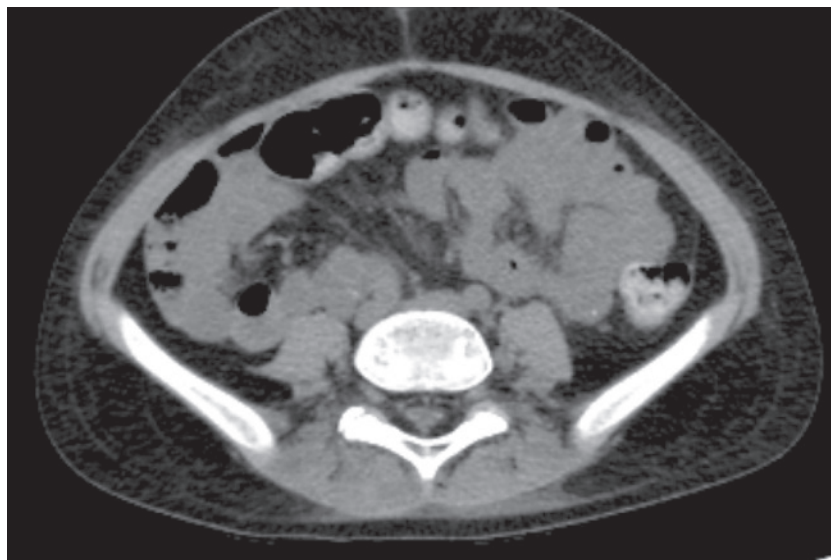


Рис. 2. Компьютерная томография брюшной полости пациента А. на 34 день химиотерапии: интерстициальный пневматоз кишечника, энтероколит

Figure 2. Abdominal computed tomography of patient A. on the 34th day of chemotherapy: interstitial pneumatosis of the intestine, enterocolitis

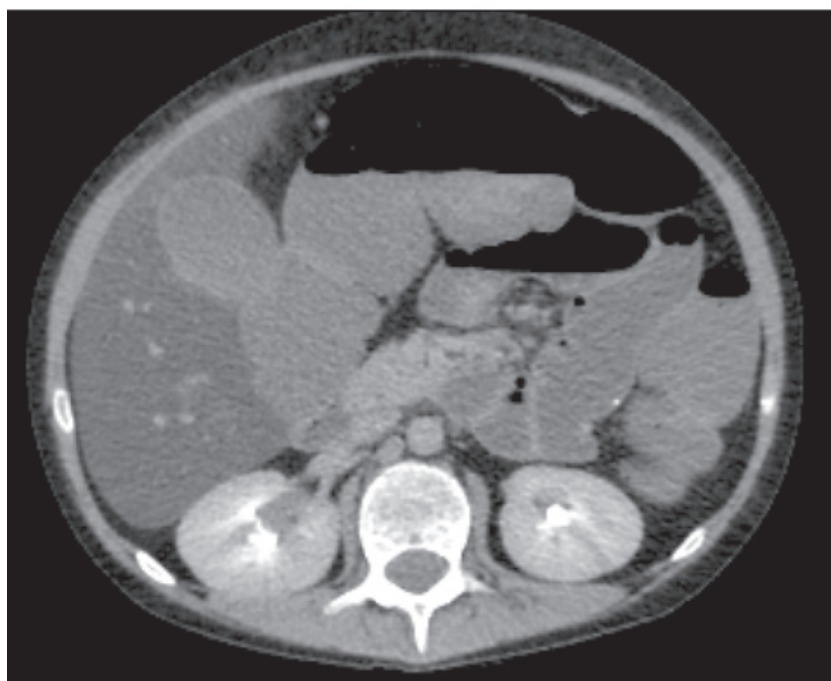


Рис. 3. Компьютерная томография брюшной полости пациента А. в динамике на фоне консервативной терапии: признаки динамической кишечной непроходимости

Figure 3. Abdominal computed tomography of patient A. in dynamics during conservative therapy: signs of dynamic bowel obstruction

ными пузырьками воздуха и скопление жидкости в брюшной полости (100 мл), что указывает на интерстициальный пневматоз и энтероколит (рис. 2). Было принято решение о приостановлении противоопухолевого лечения и проведении консервативной терапии КПК: метронидазол перорально, меропенем, амикацин, вориконазол, щадящая диета). На 39 день от начала лечения на фоне консервативной терапии отмечена отрицательная динамика в виде: увеличение окружности живота, усиление болевого абдоминального синдрома, рвота, жидкий стул с примесью крови. В общем анализе крови нарастание анемии до 80 г/л, что потребовало трансфузионной поддержки. При проведении УЗИ брюшной полости выявлено, что на всем протяжении толстого кишечника петли раздуты с жидким кишечным содержимым, перистальтика отсутствует. На КТ органов брюшной полости сохраняется утолщение стенок тонкой кишки с единичными пузырьками воздуха в них, петли толстой и тонкой кишки с большим количеством жидкостного содержимого и горизонтальными уровнями, свободного газа и жидкости в брюшной полости не определяется (рис. 3). Проведена коррекция консервативной терапии: полное парентеральное питание, прозерин подкожно для стимуляции перистальтики, эпидуральная анестезия, очистительные гипертонические клизмы, гемостатическая терапия, антибактериальная и противогрибковая терапия в прежнем

объеме. В результате на 44 день терапии отмечена положительная динамика: уменьшение окружности живота, регрессия болевого абдоминального синдрома, улучшение перистальтики, стул самостоятельный без примеси крови. При проведении КТ органов брюшной полости на 50 день патологических изменений не выявлено (рис. 4).

Обсуждение

КПК — редкая патология у детей. В нашей клинике за последние 5 лет это состояние выявлено у 2 из 63 пациентов с онкогематологическими заболеваниями (3 %). Существенную роль в патогенезе развития КПК играют бактериальные агенты, но отметим, что проведение химиотерапии потенцирует развитие иммуносупрессивного состояния, которое усугубляет течение инфекционного процесса. Это демонстрируют представленные клинические случаи: у пациента Г. отмечена гематологическая токсичность 4 степени, которая, вероятнее всего, вызвала неконтролируемое развитие кистозного пневматоза кишечника, что в дальнейшем привело к сепсису и полиорганной недостаточности. Менее выраженная гематологическая токсичность (2 степени) у пациента А. позволила лучше контролировать инфекционный процесс и использовать эпидуральную анестезию в качестве терапии паретической кишечной непроходимости, развившейся на фоне кистозного пневма-

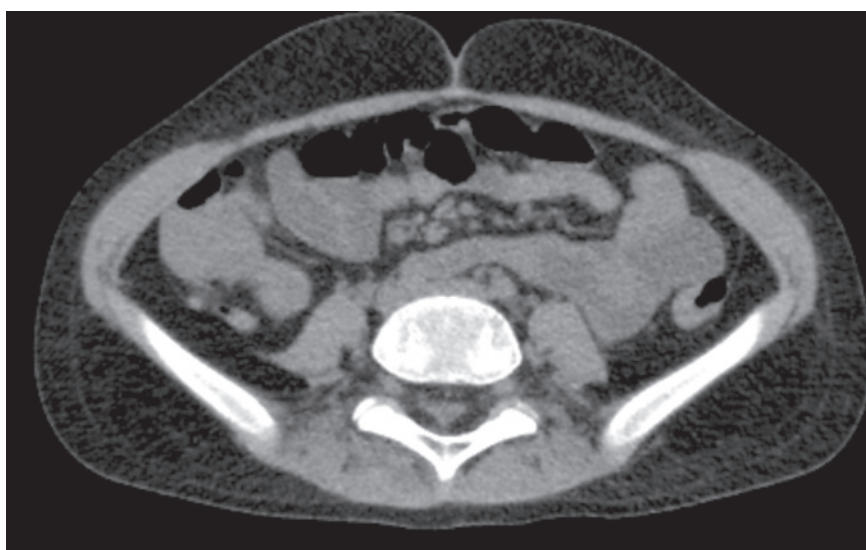


Рис. 4. Компьютерная томография брюшной полости пациента А. в динамике на фоне коррекции консервативной терапии: разрешение динамической кишечной непроходимости, интерстициального пневматоза кишечника, энтероколита

Figure 4. Abdominal computed tomography of patient A. in dynamics during correction of conservative therapy: resolution of dynamic bowel obstruction, interstitial pneumatosis of the intestine, enterocolitis

тоза кишечника. Кроме того, препараты из класса антрациклиновых антибиотиков могут вызывать дефекты слизистых оболочек, что является входными воротами для микроорганизмов. Препараты из группы цитостатиков, например винкристин, воздействуя на нервные окончания, могут вызывать динамическую кишечную непроходимость, что является предрасполагающим фактором для развития КПК. Данные группы препаратов применялись в терапии у наших пациентов и могли сыграть значительную роль в развитии КПК [5]. В литературе описана многоликая клиническая картина КПК [1], но в описанных нами случаях преобладали следующие симптомы: боли в животе, запор, вздутие живота. По данным литературы, в основе диагностики этого осложнения лежит рентгенография, КТ брюшной полости с контрастным усилением и эндоскопия [3, 6]. Нами диагноз КПК был подтвержден при помощи КТ, УЗИ. В литературных источниках описано, что при развитии КПК необходимо в первую очередь начинать консервативную терапию, а к хирургическим методам лечения прибегать в случае развития перфорации кишки и перитонита [4, 6]. Мы также использовали консервативную тактику: очистительные клизмы, антибактериальную терапию, эпидуральную анестезию, парентеральное питание и введение прозерина для стимуляции перистальтики.

Заключение

КПК — редкое состояние, развивающееся у пациентов, получающих противоопухолевую терапию, которое может привести к жизнеугрожающим осложнениям. Первым этапом терапии должно быть консервативное лечение, которое показывает хорошие результаты, к хирургическим методам прибегают при осложнениях — в случае перфорации кишки с развитием перитонита.

Конфликт интересов/ Conflict of interest

Авторы заявили об отсутствии конфликта интересов. / The authors declared no conflict of interest.

Список литературы/ References

1. Машков А.Е., Филюшкин Ю.Н., Щербина В.И. и др. Случай кистозного пневматоза толстой кишки у ребенка 2 лет 5 месяцев с острым лимфобластным лейкозом. *Детская хирургия*. 2015;19(4):47–48.
2. Петров С.В., Земляной В.П., Сигуа Б.В. и др. Кистозный пневматоз кишечника — редкая причина нехирургического пневмоперитонеума. *Новости хирургии*. 2020;28(1):106–111.
3. Guzmán-Argüello G, Silva-Zamora J, Israel Salgado-Adame I. Intestinal cystic pneumatosis: a rare

entity. *International Journal of Research in Medical Sciences*. 2022;10(11):2651–3.

4. Li S, Traubici J, Ethier M, et al. Pneumatosis intestinalis in children with acute lymphoblastic leukemia and acute myeloid leukemia. *Support Care Cancer*. 2012;20(2):343–7. DOI: 10.1007/s00520-011-1088-x.

5. Liqing Y, Xi Z, Hao Y, Qin W, et al. Pneumatosis cystoides intestinalis associated with etoposide in hematological malignancies: a case report and a literature review. *BMC Gastroenterology*. 2022;22(150):2–9. DOI:10.1186/s12876-022-02219-8.

6. Gazzaniga G, Villa F, Tosi F, et al. Pneumatosis Intestinalis Induced by Anticancer Treatment: A Systematic Review. *Cancers*. 2022;14(7):1666. DOI:10.3390/cancers14071666.

7. Рыков М.Ю., Турабов И.А. *Детская онкология: учебник*. Москва: ГЭОТАР-Медиа, 2018. 280 с.

Информация об авторах:

Боровая Анастасия Алексеевна, клинический ординатор кафедры детской хирургии ФГБОУ ВО «Северный государственный медицинский университет» Минздрава России;

Уланова Анна Сергеевна, врач — детский онколог ГБУЗ АО «Архангельская областная детская клиническая больница им. П. Г. Выжлецова»;

Турабов Иван Александрович, д.м.н., профессор, заведующий кафедрой детской хирургии ФГБОУ ВО «Северный государственный медицинский университет» Минздрава России;

Митрофанов Вячеслав Аркадьевич, врач — детский онколог ГБУЗ АО «Архангельская областная детская клиническая больница им. П. Г. Выжлецова»;

Куликов Александр Сергеевич, врач — детский онколог ГБУЗ АО «Архангельская областная детская клиническая больница им. П. Г. Выжлецова».

Authors information:

Anastasiya A. Borovaya, Clinical Intern at the Department of Pediatric Surgery, Northern State Medical University;

Anna S. Ulanova, Pediatric Oncologist at the Arkhangelsk Regional Children's Clinical Hospital named after P. G. Vyzhletsov;

Ivan A. Turabov, D.M.Sc., Professor, Head of the Department of Pediatric Surgery at the Northern State Medical University;

Vyacheslav A. Mitrofanov, Pediatric Oncologist at the Arkhangelsk Regional Children's Clinical Hospital named after P. G. Vyzhletsov;

Alexander S. Kulikov, Pediatric Oncologist at the Arkhangelsk Regional Children's Clinical Hospital named after P. G. Vyzhletsov.