

Рецидивирующий напряженный катамениальный пневмоторакс у пациентки с эндометриозом

*Г.А. Казарян¹, Д.В. Базаров¹, А.Ю. Григорчук¹, А.А. Казарян²,
В.Ю. Савина¹, С.А. Леваков², С.В. Пауков², А.Э. Мамедова², Г.Я. Азадова²*

¹ ФГБНУ Российский научный центр хирургии имени академика Б.В. Петровского, Москва, Россия

² ФГАОУ ВО Первый Московский государственный медицинский университет имени И.М. Сеченова Минздрава России (Сеченовский университет), Москва, Россия

Катамениальный пневмоторакс – редкая причина спонтанного пневмоторакса у женщин репродуктивного возраста и одно из проявлений торакального эндометриоза. Несмотря на большой интерес со стороны исследователей во всем мире, четкая тактика лечения такой патологии до сих пор не выработана. Проведение торакоскопической ревизии плевральной полости, а также выявление и последующая гистологическая верификация очагов эктопического эндометриоза играют ключевую роль в определении тактики лечения этой категории пациенток. В предлагаемой работе описано клиническое наблюдение успешного лечения пациентки с рецидивирующим напряженным катамениальным пневмотораксом с последующим мультидисциплинарным анализом заболевания.

Ключевые слова: катамениальный пневмоторакс, торакальный эндометриоз, гистологическое исследование

Для корреспонденции: Григорий Александрович Казарян. E-mail: dr.kazaryan@yahoo.com

Для цитирования: Казарян Г.А., Базаров Д.В., Григорчук А.Ю., Казарян А.А., Савина В.Ю., Леваков С.А., Пауков С.В., Мамедова А.Э., Азадова Г.Я. Рецидивирующий напряженный катамениальный пневмоторакс у пациентки с эндометриозом. Клини. эксп. морфология. 2021;10(2):57–61. DOI: 10.31088/CEM2021.10.2.57-61.

Финансирование. Работа выполнена в рамках государственного задания Российского научного центра хирургии имени академика Б.В. Петровского (№ 0394-2021-0004).

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Статья поступила 22.03.2021. Получена после рецензирования 06.04.2021. Принята в печать 21.04.2021.

Recurrent catamenial tension pneumothorax in a patient with endometriosis

*G.A. Kazaryan¹, D.V. Bazarov¹, A.Yu. Grigorchuk¹, A.A. Kazaryan²,
V. Yu. Savina¹, S.A. Levakov², S.V. Paukov², A.E. Mamedova², G.Ya. Azadova²*

¹ B.V. Petrovsky National Research Centre of Surgery, Moscow, Russia

² I.M. Sechenov First Moscow State Medical University of the Ministry of Health of Russia (Sechenov University), Moscow, Russia

Catamenial pneumothorax is a rare cause of spontaneous pneumothorax in women of reproductive age and one of the thoracic endometriosis manifestations. Researchers have shown an increased interest in catamenial pneumothorax but a clear treatment strategy for this pathology has not been developed yet. The thoracoscopic revision of the pleural cavity, as well as the identification and subsequent histological verification of ectopic endometriosis foci, play a crucial role in patient management. This case report describes the successful treatment of a patient with recurrent catamenial tension pneumothorax and following multidisciplinary analysis.

Keywords: catamenial pneumothorax, thoracic endometriosis, histological examination

Corresponding author: Grigoriy A. Kazaryan. E-mail: dr.kazaryan@yahoo.com

For citation: Kazaryan G.A., Bazarov D.V., Grigorchuk A.Yu., Kazaryan A.A., Savina V.Yu., Levakov S.A., Paukov S.V., Mamedova A.E., Azadova G.Ya. Recurrent catamenial tension pneumothorax in a patient with endometriosis. Clin. exp. morphology. 2021;10(2):57–61. DOI: 10.31088/CEM2021.10.2.57-61 (In Russ.).

Funding. The study was carried out within the framework of State Assignment to B.V. Petrovsky National Research Centre of Surgery (No. 0394-2021-0004).

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Received 22.03.2021. Received in revised form 06.04.2021. Accepted 21.04.2021.

Введение

Эндометриоз является хроническим гормонально зависимым прогрессирующим заболеванием, характеризующимся наличием эктопической эндометриодной ткани. По данным литературы, до 10% женщин репродуктивного возраста имеют эндометриодные эктопические очаги различной степени клинической активности [1–3]. Наиболее часто при эндометриозе поражаются яичники, маточные трубы и брюшина, однако эндометриодные очаги также выявляют в кишечнике, сердце, легких, коже и других атипичных локализациях [4, 5].

Катамениальный пневмоторакс (КП) (от греч. *katamenios* – возобновляющийся ежемесячно) – редкая форма спонтанного пневмоторакса у женщин среднего репродуктивного возраста. Для заболевания характерны частые рецидивы, которые возникают за 24 часа до начала или через 72 часа после начала менструации. Поражение диафрагмы при эндометриозе ведет к развитию торакального катамениального синдрома, который включает в себя боли в груди во время менструации, пневмоторакс, гемоптизис и гемоторакс. Рецидивы КП достаточны частые и могут достигать 70% [4, 5]. Тем не менее ввиду того, что эта патология в практике торакального хирурга встречается эпизодически, зачастую таких пациенток ведут по общепринятым протоколам, выполняя плевральные пункции и не выявляя буллы в легких, редко прибегают к оперативным вмешательствам. В свою очередь, это приводит к частым рецидивам пневмоторакса, в том числе напряженным. Как пример приводим следующее клиническое наблюдение.

Клиническое наблюдение

Пациентка К., 1986 года рождения, страдает наружным генитальным эндометриозом в течение многих лет. В анамнезе беременностей не было, эндометриоз диагностирован на основании УЗИ, а также по данным лапароскопического оперативного вмешательства по поводу параовариальных кист в 2011 году, где выявлены эндометриодные гетеротопии на тазовой брюшине и яичниках. Специфическое лечение на тот момент пациентка не получала.

В 2019 году перенесла два эпизода рецидивирующего спонтанного пневмоторакса, по поводу чего было выполнено дренирование плевральной полости; этиология пневмоторакса не установлена.

Пациентка обратилась в РНЦХ им. акад. Б.В. Петровского с целью выработки тактики лечения. Учитывая рецидивирующий характер пневмоторакса, наличие эндометриоза в анамнезе, заподозрен КП. С целью гистологической верификации экстрагенитальных очагов эндометриоза, а также проведения хирургического лечения было принято решение об оперативном вмешательстве во второй фазе менструального цикла, поскольку выявление эндометриодных очагов более вероятно именно в этот период. 6 декабря 2019 года

выполнена торакоскопическая операция. Интраоперационно выявлены сквозные дефекты диафрагмы размерами от 0,5 × 0,6 до 0,3 × 0,4 см (рис. 1 А). Последние иссечены в пределах здоровых тканей с целью гистологической верификации. Выполнены пластика диафрагмы с использованием фторопластового фетра и плеврэктомия для профилактики рецидивов пневмоторакса.

При гистологическом исследовании микропрепарата в биоптатах диафрагмы обнаружены очаги фиброза с мелкими отложениями гемосидерина, очаговой пролиферацией мезотелия плевры (рис. 1 В), таким образом, был диагностирован фиброз, так как эндометриодный эпителий не выявлен, это не позволило подтвердить клинический диагноз эндометриоза.

В связи с расхождением клинического и патологоанатомического диагнозов проведено иммуногистохимическое исследование очагов эндометриоза. Реакции

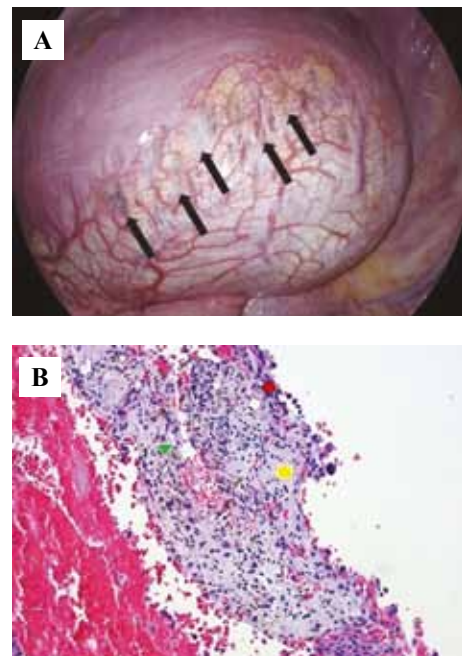


Рис. 1. Макроскопическое и микроскопическое изображение эндометриодных очагов в диафрагме. А – интраоперационное фото: эндометриодные очаги на куполе диафрагмы (указаны стрелкой), В – гистологическое исследование интраоперационного материала. На фото представлен очаг фиброза (■) плевры, в толще которого присутствует пигмент гемосидерин (▼), на поверхности отмечается пролиферирующий мезотелий (●). Окраска гематоксилином и эозином, ×200

Fig. 1. Gross intraoperative appearance and microscopic image of the endometrioid lesions in the diaphragm. A – intraoperative photo: endometrioid foci on the diaphragm dome (indicated by the arrow), B – histological examination of the intraoperative material. The image shows the fibrotic focus of the pleura (■), in the thickness of which there is hemociderin pigment present (▼); on the surface, there is a proliferating mesothelium (●). H&E stain, ×200

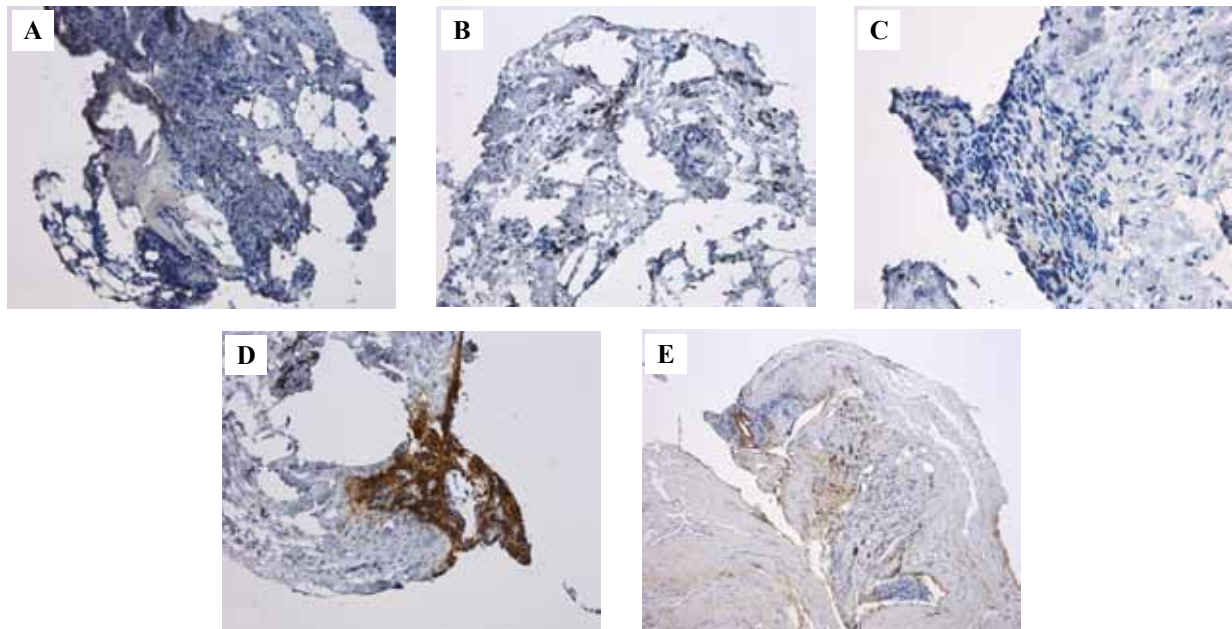


Рис. 2. Иммуногистохимическое (ИГХ) исследование.

- А – степень выраженности реакции +++ . Реакция с антителами к общим цитокератинам, $\times 400$.
 В – степень выраженности реакции +++ . Реакция с антителами к рецепторам эстрогена, $\times 400$.
 С – степень выраженности реакции +++ . Реакция с антителами к рецепторам прогестерона $\times 400$.
 D – степень выраженности реакции +++ . Реакция с антителами к антигену CD10, $\times 400$.
 E – степень выраженности реакции +++ . Реакция с антителами к антигену HBME1, $\times 400$

Fig. 2. Immunohistochemical (IHC) assay.

- A – reaction severity degree is estimated at +++ . Reaction with antibodies to common cytokeratins, $\times 400$. B – reaction severity degree is +++ . Reaction with antibodies to estrogen receptors, $\times 400$. C – reaction severity degree is +++ . Reaction with antibodies to progesterone receptors. D – reaction severity degree is +++ . Reaction with antibodies to antigen CD10, $\times 400$.
 E – reaction severity degree is +++ . Reaction with antibodies to HBME1, $\times 400$

с антителами к общим цитокератинам (рис. 2 А), рецепторам эстрогена (ER) (рис. 2 В), рецепторам прогестерона (PR) (рис. 2 С), антигену CD10 (рис. 2 D) дали положительную реакцию в части клеток. Проведена реакция с антителами к маркерам мезотелия (HBME1), которая оказалась положительной в клетках мезотелия (рис. 2 E).

Таким образом, гистологическое исследование подтвердило диагноз «стромальный эндометриоз». После выписки из стационара пациентка получала гормональную терапию диеногестом 2 мг в сутки в непрерывном режиме в течение 6 месяцев. К моменту написания данной статьи у пациентки достигнута полная ремиссия заболевания. За время наблюдения в послеоперационном периоде в течение 14 месяцев рецидивов пневмоторакса не обнаружено. Пациентка наблюдается у репродуктолога, планирует беременность.

Обсуждение

В основе патогенеза торакального эндометриоза лежит маточно-перитонеальный рефлюкс [4]. Заброс менструальной крови и имплантация клеток эндометрия в стенки брюшной полости, в том числе в поддиафрагмальное пространство, приводят к диссеминации процесса. Наиболее часто поражения встречаются справа – в 91,7% случаев, слева – в 4,8%, а билатеральное

поражение отмечается редко, примерно у 3,5% пациенток. Такая статистика объясняется особенностями циркуляции жидкости в брюшной полости. Сочетание торакального и генитального эндометриоза имеет место у 58,8% пациенток с катамениальным пневмотораксом [5–7]. Распространение воздуха и развитие спонтанного пневмоторакса во время менструации происходят по следующей цепочке: трансгенитальный – трансабдоминальный – трансдиафрагмальный путь. Катамениальный пневмоторакс появляется в результате поражения и перфорации диафрагмы эндометриоидными гетеротопиями [8, 9].

При гистологическом исследовании дифференциальная диагностика торакального эндометриоза, как правило, проводится между метастатической аденокарциномой и мезотелиомой. Казалось бы, наличие стромального компонента, окружающего железы, позволяет исключить диагноз «аденокарцинома» или «мезотелиома», однако при эндометриозе эпителий может проявляться в виде клеточных атипий. В ходе иммуногистохимического исследования, проводимого при торакальном эндометриозе, возможны перекрестные реакции с эстрогеном и прогестероном, а также с кальретинином и нейроэндокринными маркерами. Тесное взаимодействие между патоморфологами и клиницистами, на наш взгляд, может решить проблему по-

становки правильного диагноза. В исследовании, проведенном в 1998 году, Douglas B. Flieder описал девять случаев торакального эндометриоза: всем пациенткам были проведены биопсия пораженных участков и подробное гистологическое и иммуногистохимическое исследование. Во всех случаях диагноз торакального эндометриоза подтвержден на основании клинических и патоморфологических данных [10]. Настоящая работа в очередной раз показывает необходимость расширенного патоморфологического исследования биопсийного материала для правильной диагностики относительно редких и сложных для распознавания заболеваний.

Заключение

Проблема торакального эндометриоза и катамениального пневмоторакса лежит в зоне ответственности как патоморфологов, так и клиницистов – торакальных хирургов, акушеров-гинекологов. Тщательный сбор анамнеза, а также внимательная ревизия плевральной полости и проведение биопсии всех выявленных изменений с последующей гистологической и иммуногистохимической верификацией позволяют своевременно и достоверно поставить диагноз и выбрать правильную тактику лечения.

Литература/References

1. Maurer ER, Schaal JA, Mendez FL Jr. Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm. *J Am Med Assoc.* 1958;168(15):2013–4. DOI: 10.1001/jama.1958.63000150008012c.
2. Shrestha B, Shrestha S, Peters P, Ura M, Windsor M, Naidoo R. Catamenial pneumothorax, a commonly misdiagnosed thoracic condition: Multicentre experience and audit of a small case series with review of the literature. *Heart Lung Circ.* 2019;28(6):850–7. DOI: 10.1016/j.hlc.2019.01.012.
3. Bień A, Rzońca E, Zarajczyk M, Wilkosz K, Wdowiak A, Iwanowicz-Palus G. Quality of life in women with endometriosis: A cross-sectional survey. *Qual Life Res.* 2020;29(10):2669–77. DOI: 10.1007/s11136-020-02515-4.
4. Романов М.Д., Куреева Е.М. Легочный эндометриоз: лечебная тактика. *Новости хирургии.* 2018;26(1):103–108. DOI: 10.18484/2305-0047.2018.1.103.
Romanov MD, Kireeva EM. Pulmonary endometriosis: treatment tactics. Novosti Khirurgii (Surgery News). 2018;26(1):103–108. (In Russ.). DOI: 10.18484/2305-0047.2018.1.103.
5. Marjański T, Sowa K, Czaplą A, Rzyman W. Catamenial pneumothorax – a review of the literature. *Kardiochir Torakochirurgia Pol.* 2016;13(2):117–21. DOI: 10.5114/kitp.2016.61044.
6. Suardika A, Astawa Pemayun TG. New insights on the pathogenesis of endometriosis and novel non-surgical therapies. *J Turk Ger Gynecol Assoc.* 2018;19(3):158–64. DOI: 10.1017/S0967199420000830.
7. Nezhat C, Lindheim SR, Backhus L, Vu M, Vang N, Nezhat A et al. Thoracic endometriosis syndrome: A review of diagnosis and management. *JSLs.* 2019;23(3):e2019.00029. DOI: 10.4293/JSLs.2019.00029.
8. Zondervan KT, Becker CM, Missmer SA. Endometriosis. *N Engl J Med.* 2020;382(13):1244–56. DOI: 10.1056/NEJMra1810764.
9. Viti A, Bertoglio P, Roviglione G, Clarizia R, Ruffo G, Ceccaroni M et al. Endometriosis involving the diaphragm: A patient-tailored minimally invasive surgical treatment. *World J Surg.* 2020;44(4):1099–104. DOI: 10.1007/s00268-019-05320-4.
10. Flieder DB, Moran CA, Travis WD, Koss MN, Mark EJ. Pleuro-pulmonary endometriosis and pulmonary ectopic decidualis: A clinicopathologic and immunohistochemical study of 10 cases with emphasis on diagnostic pitfalls. *Hum Pathol.* 1998;29(12):1495–503. DOI: 10.1016/s0046-8177(98)90021-1.

Информация об авторах

Григорий Александрович Казарян – младший научный сотрудник отделения торакальной хирургии и онкологии РНЦХ им. акад. Б.В. Петровского.

Дмитрий Владимирович Базаров – доктор медицинских наук, заведующий отделением торакальной хирургии и онкологии РНЦХ им. акад. Б.В. Петровского.

Александр Юрьевич Григорчук – кандидат медицинских наук, старший научный сотрудник отделения торакальной хирургии и онкологии РНЦХ им. акад. Б.В. Петровского.

Александр Александрович Казарян – студент 6-го курса лечебного факультета Первого МГМУ им. И.М. Сеченова (Сеченовский университет).

Виктория Юрьевна Савина – младший научный сотрудник 1-го патоморфологического отделения РНЦХ им. акад. Б.В. Петровского.

Сергей Александрович Леваков – доктор медицинских наук, профессор, заведующий кафедрой акушерства и гинекологии Института клинической медицины им. Н.В. Склифосовского Первого МГМУ им. И.М. Сеченова (Сеченовский университет).

Сергей Вячеславович Пауков – кандидат медицинских наук, доцент кафедры акушерства и гинекологии Института клинической медицины им. Н.В. Склифосовского Первого МГМУ им. И.М. Сеченова (Сеченовский университет).

Айнур Эльхан кызы Мамедова – аспирант кафедры акушерства и гинекологии Института клинической медицины им. Н.В. Склифосовского Первого МГМУ им. И.М. Сеченова (Сеченовский университет).

Гюллар Ясир кызы Азадова – аспирант кафедры акушерства и гинекологии Института клинической медицины им. Н.В. Склифосовского Первого МГМУ им. И.М. Сеченова (Сеченовский университет).

Author information

Grigoriy A. Kazaryan – Junior Researcher, Department of Thoracic Surgery and Oncology, B.V. Petrovsky National Research Centre of Surgery. <https://orcid.org/0000-0002-0545-9078>

Dmitry V. Bazarov – Dr. Sci. (Med.), Head of the Department of Thoracic Surgery and Oncology, B.V. Petrovsky National Research Centre of Surgery.

<https://orcid.org/0000-0002-2888-419X>

Aleksandr Yu. Grigorchuk – Cand. Sci. (Med.), Senior Researcher, Department of Thoracic Surgery and Oncology, B.V. Petrovsky National Research Centre of Surgery.

<https://orcid.org/0000-0001-7742-2568>

Aleksandr A. Kazaryan – 6th-year Student, Medical Faculty, I.M. Sechenov First Moscow State Medical University (Sechenov University).

<https://orcid.org/0000-0002-8556-1143>

Victoria Yu. Savina – Junior Researcher, 1st Pathology Department, B.V. Petrovsky National Research Centre of Surgery.

<https://orcid.org/0000-0003-3494-2867>

Sergei A. Levakov – Dr. Sci. (Med.), Professor, Head of the Department of Obstetrics and Gynecology, N.V. Sklifosovsky Institute of Clinical Medicine, I.M. Sechenov First Moscow State Medical University (Sechenov University).

<https://orcid.org/0000-0002-4591-838X>

Sergei V. Paukov – Cand. Sci. (Med), Associate Professor, Department of Obstetrics and Gynecology, N.V. Sklifosovsky Institute of Clinical Medicine, I.M. Sechenov First Moscow State Medical University (Sechenov University).

<https://orcid.org/0000-0001-8428-284X>

Ainur E. Mamedova – Postgraduate Student, Department of Obstetrics and Gynecology, N.V. Sklifosovsky Institute of Clinical Medicine, I.M. Sechenov First Moscow State Medical University (Sechenov University).

<https://orcid.org/0000-0002-9642-4523>

Gullar Ya. Azadova – Postgraduate Student, Department of Obstetrics and Gynecology, N.V. Sklifosovsky Institute of Clinical Medicine, I.M. Sechenov First Moscow State Medical University (Sechenov University).

<https://orcid.org/0000-0002-5553-6334>