

Гетеротопия легкого в брюшную полость у новорожденной девочки

А.Л. Черняев^{1,2}, К.А. Куликов³, П.В. Хроленко³, О.А. Васюкова², М.В. Самсонова^{1,4}

¹ ФГБУ Научно-исследовательский институт пульмонологии ФМБА России, Москва, Россия

² ФГБНУ Научно-исследовательский институт морфологии человека, Москва, Россия

³ ФГАУ Национальный медицинский исследовательский центр здоровья детей Минздрава России, Москва, Россия

⁴ ГБУЗ Московский клинический научно-практический центр имени А.С. Логинова Департамента здравоохранения города Москвы, Москва, Россия

Гетеротопия – изменение места закладки и развития органа в процессе его индивидуального развития. В литературе описаны редкие случаи обнаружения экстралобарной секвестрации легких в мягкие ткани шеи, в грудную стенку, в эндокард левого желудочка сердца, в кожу, в прямую кишку, в орбиту глаза и в субретинальное пространство.

В данной работе представлено клиническое наблюдение редкой формы гетеротопии легких в брюшной полости у девочки, диагностированной через 6 дней после рождения. Ребенок от доношенной, но осложненной беременности, родоразрешение путем кесарева течения, при рождении масса тела 3680 г, рост 50 см, 7/8 баллов по шкале Апгар, состояние тяжелое. На 3-и сутки после рождения зафиксирован приступ тахикардии до 205 ударов в минут и падения артериального давления, который был купирован в течение 15 минут; на 6-е сутки в отделении хирургии и реанимации новорожденных НМИЦ здоровья детей при ультразвуковом исследовании выявлено экзогенное неоднородное опухолевидное образование размерами 22×28×20 мм с множественными анеэхогенными полостями диаметром до 6 мм, которое было удалено лапароскопически на 10-е сутки после рождения ребенка. При патологоанатомическом исследовании операционного материала обнаружено, что образование представлено тканью легкого. Девочка была выписана в удовлетворительном состоянии в ясном сознании.

Вероятно, такая гетеротопия могла развиваться в онтогенезе во время осложненной беременности в I и III триместрах (в I триместре диагностирован порок развития плода, без уточнений, а в III — угроза прерывания беременности, повышение АД, отеки беременной).

Ключевые слова: гетеротопия легких, осложненная беременность.

Для корреспонденции: Самсонова Мария Викторовна. E.mail: samary@mail.ru

Для цитирования: Черняев А.Л., Куликов К.А., Хроленко П.В., Васюкова О.А., Самсонова М.В. Гетеротопия легкого в брюшную полость у новорожденной девочки. Клини. эксп. морфология. 2019;8(4):59–62. DOI:10.31088/CEM2019.8.4.59-62

Финансирование. Работа выполнена в рамках государственного задания ФГБНУ «Научно-исследовательский институт морфологии человека» (№ ААА-А17-117013050044-8).

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Статья поступила 11.10.2019. Получена после рецензирования 11.11.2019. Принята в печать 19.11.2019.

Intra-abdominal heterotopic lung tissue in the newborn girl

A.L. Cherniaev^{1,2}, K.A. Kulikov³, P.V. Khrolenko³, O.A. Vasyukova², M.V. Samsonova^{1,4}

¹ Research Institute of Pulmonology, Federal Medical and Biological Agency of Russian Federation, Moscow, Russia

² Research Institute of Human Morphology, Moscow, Russia

³ Scientific Center of Children Health, Moscow Healthcare Department, Moscow, Russia

⁴ Loginov Moscow Clinical Scientific Center, Moscow Healthcare Department, Moscow, Russia

Heterotopia is the spatial displacement of an organ during prenatal development. The literature data describe rare cases of the extralobar sequestration of the lung in different locations, such as neck soft tissues, chest wall, endocardium of the left ventricle, skin, rectum, eye orbit as well as the subretinal space.

The paper presents a clinical case of the rare lung heterotopia in the abdominal cavity diagnosed 6 days after birth in a girl. The baby was born after a full-term complicated pregnancy by Caesarean section. Body weight at birth was 3680 g, height 50 cm, 7/8 points on the Apgar scale. The condition of the newborn was severe. On

the third day after delivery, an attack of tachycardia up to 205 beats per minute and a drop in blood pressure was recorded and stopped within 15 minutes. On the 6th day after birth, an ultrasound revealed an echogenic inhomogeneous tumor-like formation $22 \times 28 \times 20$ mm in size with multiple anechogenic cavities with a diameter of up to 6 mm, which was removed laparoscopically on the 10th postpartum day in the neonatal surgery department of the Scientific Center of Children Health of the Ministry of Health of the Russian Federation. Pathological examination of the surgical material revealed that the formation was represented by lung tissue. The girl was discharged in satisfactory condition and fully conscious.

This heterotopia could probably appear due to complications of pregnancy in the first and third trimesters, since a fetal malformation, not otherwise specified, was diagnosed in the first trimester, and the threatened miscarriage, increased blood pressure and edema were recorded in the third trimester.

Keywords: heterotopia of the lung, high-risk pregnancy.

Corresponding author: Maria V. Samsonova. E-mail: samary@mail.ru

For citation: Cherniaev A.L., Kulikov K.A., Khrolenko P.V., Vasyukova O.A., Samsonova M.V. Heterotopy of the lung in abdomen in a newborn girl. Clin. exp. morphology. 2019;8(4):59–62. (In Russ.). DOI:10.31088/CEM2019.8.4.59-62

Funding. The work is performed in the framework of the state assignment of FSBI Research Institute of Human Morphology (No. AAA-A17-117013050044-8).

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

Received 11.10.2019 **Received in revised form** 11.11.2019. **Accepted** 19.11.2019.

Гетеротопия – это возникновение в процессе эмбриогенеза той или иной тканевой структуры (органа, ткани) на необычном месте. Гетеротопии одних тканей в другие – довольно редкое явление в патологии. Чаще всего описывают гетеротопии тканей надпочечников, поджелудочной [1] и щитовидной железы, печени, почки [2], поперечно-полосатых мышц, глиальной ткани, в легких [3, 4]. Описывают экстралобарную секвестрацию легких в мягкие ткани шеи, в грудную стенку, в эндокард левого желудочка сердца [5], в кожу [6], в прямую кишку [7], в орбиту глаза [8], в субретинальное пространство [9]. Такая гетеротопия довольно часто сочетается с диафрагмальной грыжей и скелетными аномалиями. P. Bassi et al. [10] описали на аутопсии наличие хористомы с легочной тканью у новорожденного, умершего через несколько часов после рождения, в дорсальной ретроперитонеальной жировой клетчатке между диафрагмой и левой почкой. Было описано наличие в брюшной полости бронхогенных кист легких [11].

Приводим собственное клиническое наблюдение.

Девочка родилась от четвертой беременности, третьи роды, на 39-й неделе беременности при головном предлежании, родоразрешение было проведено путем кесарева сечения. В I триместре (19–20-я недели) диагностирован порок развития плода, однако не указано, какой, в III триместре были угроза прерывания беременности, повышение АД, отеки беременной. Рост ребенка при рождении составил 50 см, масса тела 3680 г. Оценка состояния новорожденной по шкале Апгар 7/8 баллов. Состояние после рождения тяжелое за счет снижения уровня церебральной и двигательной активности, умеренно выраженных нарушений микроциркуляции. На 3-и сутки после рождения возникли тахикардия до 205 ударов в минуту, мраморность кожных покровов, АД 73/38 мм рт. ст., ребенок был в сознании. В течение 15 минут это со-

стояние было купировано. На фоне проведенной терапии увеличился уровень церебральной и двигательной активности, девочка самостоятельно сосала, прибавила в весе. На 6-е сутки после рождения девочка поступила в отделение хирургии и реанимации новорожденных НИИЦ здоровья детей в тяжелом состоянии. При УЗИ брюшной полости в поддиафрагмальном пространстве слева в брюшной полости было обнаружено экзогенное неоднородное опухолевидное образование размерами $22 \times 28 \times 20$ мм с множественными анезогенными полостями диаметром до 6 мм. На 10-е сутки после поступления выполнено лапароскопическое удаление опухолевидного образования брюшной полости. После операции ребенок находился на искусственной вентиляции легких. На 7-е сутки после операции были сняты швы. На 9-е сутки после операции девочка выписана в удовлетворительном состоянии, в ясном сознании, движение во всех конечностях было активное, мышечный тонус достаточный, рефлексы новорожденных (хватательный, сосательный, Моро) вызывались, но быстро истощались. Температура тела нормальная. SpO₂ 99–100%, без дотации кислорода. Продолжено грудное вскармливание.

В патологоанатомическое отделение было доставлено опухолевидное образование округлой формы диаметром 2,7 см серовато-красноватого цвета с поверхности, на разрезе: сероватая ткань с тонкостенными полостями диаметром до 0,3 см.

При гистологическом исследовании: опухолевидное образование представлено тканью легкого (рис. 1) в виде сформированных бронхов с мышечной оболочкой и хрящевыми пластинками (рис. 2, 3), встречаются терминальные бронхиолы с эмбриональными альвеолами, содержащими макрофаги (рис. 4). Опухолевое образование окружено соединительной тканью без мезотелиальной выстилки.

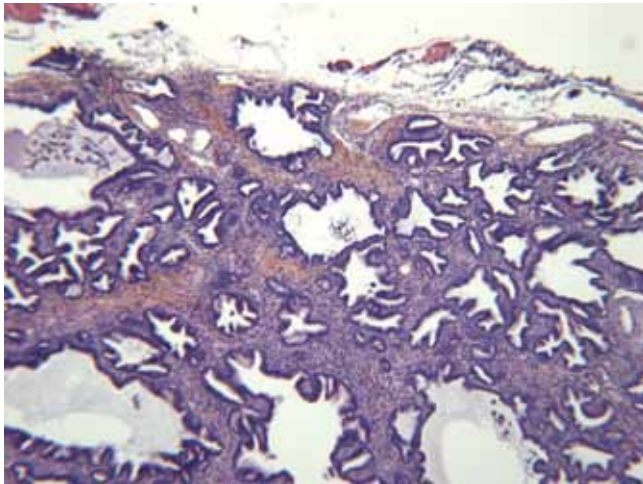


Рис. 1. Ткань легкого, покрытая серозным листком.
Окраска гематоксилином и эозином, $\times 40$
Fig. 1. Lung tissue, covered with serosa. H&E, $\times 40$

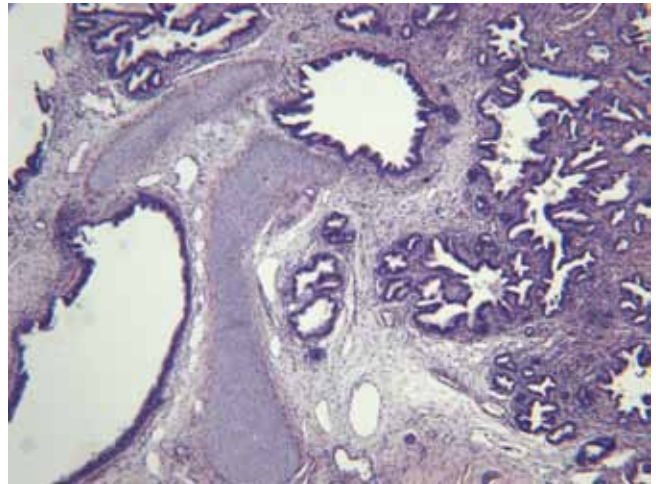


Рис. 2. Ткань легкого с наличием хрящевых бронхов
и терминальных бронхиол.
Окраска гематоксилином и эозином. $\times 40$
Fig. 2. Lung tissue with cartilaginous bronchi and terminal
bronchioles. H&E, $\times 40$.

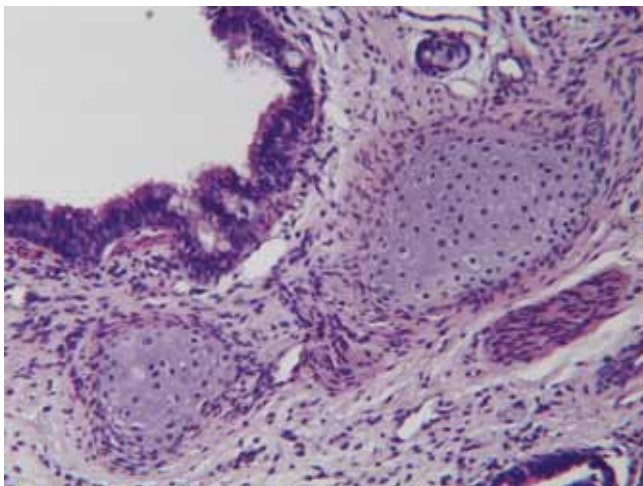


Рис. 3. Стенка хрящевого бронха, выстланная респираторным
реснитчатым эпителием.
Окраска гематоксилином и эозином, $\times 100$
Fig. 3. Large bronchus mucosa lined with respiratory ciliated
epithelium. H&E, $\times 100$

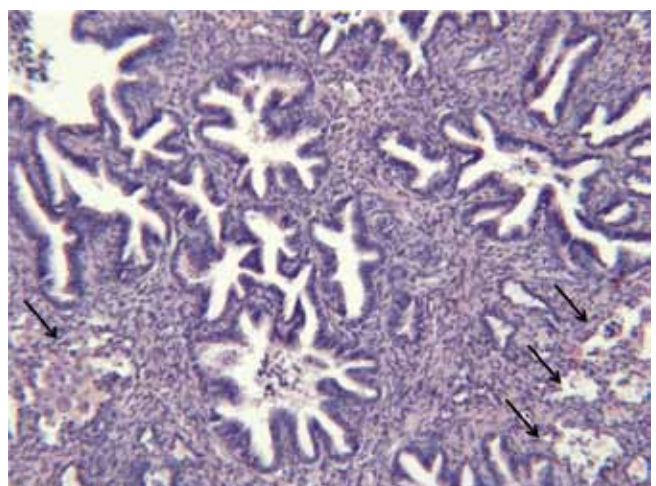


Рис. 4. Ткань легкого с наличием терминальных бронхиол
и единичных примитивных альвеол.
Окраска гематоксилином и эозином. $\times 100$
Fig. 4. Lung tissue with terminal bronchioles and few immature
alveoli. H&E, $\times 40$

В литературе мы нашли описания гетеротопии легкого в брюшной полости. Данный вариант следует дифференцировать с экстраторакальной секвестрацией, при которой ткань легкого, не связанная с бронхиальным деревом, должна быть окружена плевральным листком с мезотелиальной выстилкой. В нашем наблюдении мезотелиальная выстилка нами не обнаружена. В работе G.W. Jeon et al. приведено наблюдение гетеротопии легочной ткани в коже у новорожденной, гистологическая картина которой была аналогичной описанной нами выше [6].

Заключение

Описана редкая форма гетеротопии легких в брюшной полости у девочки, диагностированная через 6 дней

после рождения. Вероятно, такая гетеротопия могла возникнуть в онтогенезе во время осложненной беременности в I и III триместрах.

Литература/References

1. De Krijger RR, Albers MJ, Bogers AJ, Mooi WJ. Heterotopic pancreatic tissue presenting as a solid and cystic lung lesion: a very unusual bronchopulmonary foregut malformation. *Pediatr Dev Pathol.* 2004;7(2):204–9. DOI: 10.1007/s10024-002-8093-5.
2. Di Guardo G, Marruchella G, Affronte M, Zappulli V, Benazzi C. Heterotopic kidney tissue in the lung of a free-living common dolphin (*Delphinus delphis*). *Vet Pathol.* 2005;42(2):213–4. DOI: 10.1354/vp.42-2-213.
3. Okeda R. Heterotopic brain tissue in the submandibular region and lung. Report of two cases and comments about pathogenesis.

- Acta Neuropathol. 1978; 43(3):217–20. DOI: 10.1007/bf00691581.
4. Rademaker MV, Bakker PM, Bots GT, Endtz LJ. Heterotopic nervous tissue in the lungs. *Neuropediatrics*. 1980;11(3):284–90. DOI: 10.1055/s-2008-1071397.
 5. Schindler CU, Scharfenberger M, Müller-Hermelink HK, Dämmrich J. Bronchial cyst in the endocardium of the left heart. Case report with review of cardiac heterotopic tissues. *Pathologe*. 1993;14(3):175–7 (In German). PMID: 8516275.
 6. Jeon GW, Han SW, Jung JM, Kang MS, Sin JB. The first Korean case of cutaneous lung tissue heterotopy. *J Korean Med Sci*. 2010;25(9):1387–9. DOI: 10.3346/jkms.2010.25.9.1387.
 7. Kawahara K, Mishima H, Nakamura S. Heterotopic respiratory mucosa in the rectum: a first case report. *Virchows Arch*. 2007;451(5):977–80. DOI: 10.1007/s00428-007-0510-8.
 8. Thanos A, Jakobiec FA, Mendoza PR, Hatton MP. Ectopic (choristomatous) orbital respiratory cyst: histopathology and immunohistochemistry. *Surv Ophthalmol*. 2014 May-Jun;59(3):328–33. DOI: 10.1016/j.survophthal.2013.07.001. Epub 2013 Dec 18.
 9. Zhang T, Lin H, Zhou Z, Tong N, Li Y, Zhang Y et al. Subretinal heterotopic respiratory epithelium: a case report and literature review. *Diagn Pathol*. 2015;10:180. DOI: 10.1186/s13000-015-0416-8.
 10. Bassi P, Gentile A, Militerno G. Retroperitoneal pulmonary choristoma in a newborn calf. *J Vet Diagn Invest*. 2010; 22(6):1008–10. DOI: 10.1177/104063871002200631.
 11. Kim KH, Kim JJ, Ahn CH, Kim JS, Ku YM, Shin OR et al. The first case of intraperitoneal bronchogenic cyst in Korea mimicking a gallbladder tumor. *J Korean Med Sci*. 2004;19(3):470–3. DOI: 10.3346/jkms.2004.19.3.470.

Информация об авторах

Черняев Андрей Львович – доктор медицинских наук, профессор, заведующий отделом фундаментальной пульмонологии Научно-исследовательского института пульмонологии, ведущий научный сотрудник лаборатории клинической морфологии НИИ морфологии человека.

Куликов Кирилл Алексеевич – заведующий патологоанатомической лабораторией НМИЦ здоровья детей.

Хроленко Полина Владимировна – врач, детский хирург НМИЦ здоровья детей.

Васюкова Олеся Александровна – младший научный сотрудник лаборатории клинической морфологии НИИ морфологии человека.

Самсонова Мария Викторовна – доктор медицинских наук, заведующая лабораторией патологической анатомии НИИ пульмонологии, старший научный сотрудник Московского клинического научно-практического Центра имени А.С. Логинава.

Author information

Andrey L. Cherniaev – Dr. Sci. (Med.), professor, Head of the Fundamental Pulmonology Department, Pulmonology Scientific Research Institute of FMBA of Russia; Leading Researcher, Laboratory of Clinical Morphology, Research Institute of Human Morphology. <https://orcid.org/0000-0003-0973-9250>

Kirill A. Kulikov – Head of the Pathology Department, Scientific Center of Children Health, Moscow Healthcare Department. <https://orcid.org/0000-0002-1107-8693>

Polina V. Khrolenko – pediatric surgeon, Scientific Center of Children Health, Moscow Healthcare Department. <https://orcid.org/0000-0001-9814-6275>

Olesya A. Vasyukova – Junior Researcher, Laboratory of Clinical Morphology, Research Institute of Human Morphology. <https://orcid.org/0000-0001-6068-7009>

Maria V. Samsonova – Dr. Sci. (Med.), Head of the Pathology Department, Pulmonology Scientific Research Institute of FMBA of Russia, Senior Researcher, Pathomorphology Department, Loginov Moscow Clinical Scientific Center. <https://orcid.org/0000-0001-8170-1260>