

УДК 616.231-006.6-089

Аденокистозный рак трахеи (обзор литературы и клиническое наблюдение)

И.В. Мосин^{1,2}, П.В. Гаврилов¹, Н.В. Мосина¹¹ Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии² Санкт-Петербургский клинический научно-практический центр специализированных видов медицинской помощи (онкологический)

Adenoid cystic carcinoma of the trachea (literature review and clinical case)

I. Mosin^{1,2}, P. Gavrilov¹, N. Mosina¹¹ St. Petersburg State Research Institute of Phthisiopulmonology² St. Petersburg Clinical Research Center of specialized types of care (oncology)

© Коллектив авторов, 2018 г.

Резюме

Выполнен анализ научных исследований по различным методам лечения аденокистозного рака трахеи. Основным видом радикального лечения являлась циркулярная резекция трахеи. У большинства больных в послеоперационном периоде проводилась адъювантная лучевая терапия. Приведены данные литературы — клинический пример многолетнего наблюдения за больной после циркулярной резекции трахеи по поводу аденокистозного рака. Рекомендовано выполнение одномоментной радикальной циркулярной резекции трахеи с последующим проведением лучевой терапии больным с аденокистозным раком трахеи.

Ключевые слова: аденокистозный рак трахеи, циркулярная резекция трахеи, лучевая терапия, гортанно-трахеальная резекция, инъекционная вентиляция легких

Summary

In this article we analyzed the literature review of different methods trachea adenoid cystic carcinoma treatment. Circular tracheal resection was the main form of radical treatment. Adjuvant radiation therapy was performed in most patients. Literature data of direct and long-term results is presented. Based on the literature review, the clinical case of long-term monitoring of the patient with adenoid cystic carcinoma of the trachea after circular tracheal resection, we suggest that simultaneous radical circular tracheal resection with subsequent radiotherapy in patients with adenoid cystic carcinoma of the trachea are the most acceptable treatment option.

Keywords: adenoid cystic carcinoma of the trachea, circular resection of the trachea, radiation therapy, laryngotracheal resection, injection lung ventilation

Обзор литературы

Первичные злокачественные новообразования трахеи являются редкой патологией. Частота данной группы заболеваний составляет всего 0,2 случая на

100 тыс. (приблизительно 0,1–0,2% всех злокачественных образований). Несмотря на невысокую встречаемость, это большая группа больных, у которых часто возникают сложности при получении специализированной медицинской помощи [1, 2].

Из всех злокачественных новообразований трахеи наибольшую частоту имеет аденокистозный рак трахеи [3–6].

Историческое название данной группы опухолей — «цилиндрома». Этот термин был предложен Т. Billroth в 1859 г. [7]. Им были описаны опухоли слюнных желез, которые характеризовались наличием цилиндрических структур и гиалиновой стромы. Аналогичное название в силу сходства морфологических проявлений получили и опухоли трахеобронхиальных желез.

Несмотря на то, что в 1981 г. Всемирная организация здравоохранения (ВОЗ) утвердила официальное название данной группы опухолей — «аденокистозный рак», термин «цилиндрома» употребляется и в настоящее время и по данным литературы встречается даже чаще официального [8–10].

Согласно данным большинства исследований аденокистозный рак преимущественно встречается у женщин. Заболевание может развиваться в любом возрасте, но чаще встречается в молодом и среднем возрасте (средний возраст больных — 44 года) [11].

В силу того, что чаще отмечался медленный рост образований, ранее данная опухоль считалась предположительно доброкачественной и включалась в группу аденом. При этом в литературе описывались и случаи с быстрым развитием опухоли и отдаленным метастазированием. Гистохимические исследования доказали злокачественную природу данных образований [12].

Гистологическая картина аденокистозного рака аналогична для всех опухолей данного типа, независимо от того, в какой анатомической области он развивается. Данный фактор привел к изменению названия «цилиндрома» на «аденокистозный рак».

Выделяют четыре типа гистологического строения аденокистозного рака:

- 1) обширные участки солидного строения со слабой выраженной стромой, с небольшими кистами или их группами;
- 2) резко выраженная фиброзная строма, железистоподобная, местами криброзные структуры с эозинофильным содержимым;
- 3) равномерное соотношение стромы и паренхимы с участками солидного и криброзного строения;
- 4) преобладание железистоподобных структур (кист) с эозинофильным содержимым.

Различия между этими вариантами обусловлены преобладанием стромы или паренхимы, с небольшими кистами или их группами [13].

Уверенный диагноз аденокарциномы может быть поставлен при сочетании двух компонентов в морфологическом препарате: скоплений характерных

мелких клеток с тенденцией к образованию пластов и межклеточной субстанции шаровидной формы с клеточным венчиком. В этом случае гистологически можно верифицировать диагноз в 97,4% случаев [14].

По степени дифференцировки аденокистозный рак трахеи делится на три степени:

- 1) минимальная степень злокачественности (grade I), при которой отмечаются только тубулярные и криброзные структуры и отсутствуют солидные;
- 2) умеренно злокачественная степень (grade II), при которой солидные структуры составляют менее 30%;
- 3) высоко злокачественная опухоль (grade III) — солидные структуры составляют более 30%, встречаются некрозы, клеточная атипия, митозы.

Аденокистозный рак характеризуется ростом по стенке трахеи с прорастанием ее и хрящей трахеи в окружающую ткань. Достаточно часто изменения захватывают стенку трахеи на значительном протяжении.

Эндоскопически при данной опухоли визуализируется выраженный экзофитный компонент, выглядящий как полип, и кольцо плотной консистенции белого или серо-розового цвета или в виде выбухающих в просвет трахеи бугристо-узловатых разрастаний с просвечивающимися эктазированными сосудами на поверхности. Плотная, неподвижная опухоль обильно кровоточит при биопсии. Данная эндоскопическая картина высокоспецифична для аденокистозного рака.

Однако при аденокистозном раке возможно распространение опухоли только в пределах слизистого слоя трахеи, без образования четко различимых эндофитных узлов. Иногда такие процессы циркулярно охватывают трахею в виде утолщения слизистой оболочки с последующей инфильтрацией межхрящевых промежутков и окружающей ткани.

При смешанном росте отмечается циркулярное сужение просвета трахеи на значительном протяжении с выбуханием одной из стенок, чаще мембранозной. На этом фоне при эндоскопическом исследовании видны крупнобугристые полиповидные разрастания с гладкой поверхностью, белесого или бледно-розового цвета, отдельные или сливающиеся между собой в гроздевидные образования. Подслизистый рост опухоли распространяется на 1–2 см дальше, чем макроскопическая граница разрастаний.

Данная опухоль редко метастазирует в регионарные лимфатические узлы (не более 10% пациентов) и, как правило, никогда не дает отдаленных метастазов [15].

Клетки аденокистозного рака не выделяются с мокротой, и данный диагноз практически невозможно установить по данным трахеальных смывов мокроты.

Крайне важным дифференциально-диагностическим пунктом считается отсутствие признаков секреции в клетках при выявлении межклеточного оксифильного вещества. При проведении цитохимических исследований в нем не выявляется слизь, а определяется лишь содержимое со слегка положительной реакцией на муцин. Данное вещество является не истинным секретом, а продуктом деградации. Это свидетельствует, что у клеток аденокистозного рака отсутствуют секреторные свойства [14].

В клинической симптоматике аденокистозного рака трахеи нет патогномичных симптомов, и его проявления зависят от характера роста опухоли [10, 16].

Наиболее часто заболевание проявляется в виде кашля (сухого или с трудно отделяемой мокротой), также в клинической картине может быть кровохарканье, затруднение дыхания с появлением одышки и приступов удушья, не поддающихся воздействию бронхолитиков. Заболевание обычно прогрессирует медленно. От появления первых симптомов до установления окончательного диагноза, как правило, проходит несколько месяцев. Однако описаны случаи, когда сроки установления диагноза достигали 20–25 лет [17].

Традиционно выделяются три стадии клинического развития болезни в зависимости от степени стеноза просвета трахеи.

При первой стадии наиболее часто определяются лающий кашель, прожилки крови в мокроте, вдох и выдох не изменены, степень стеноза менее 75%.

При второй стадии появляются одышка и свистящие хрипы, затруднения выдоха, степень стеноза составляет более 75%.

При третьей стадии в связи с дальнейшим нарастанием обструкции отмечается прогрессирование симптоматики с появлением приступов удушья.

Однако при этом отдельные авторы указывают, что для появления клинической симптоматики при аденокистозном раке трахеи необходимо сужение просвета трахеи более чем на 75%, что обусловлено адаптацией организма к медленному сужению трахеи [18, 19].

В настоящее время методом выбора лечения рака трахеи, в том числе аденокистозного рака, является хирургический. Первоначально резекции трахеи выполнялись только при неспецифических стенозах трахеи, но впоследствии циркулярные резекции трахеи были внедрены и при опухолевых поражениях трахеи

При этом в силу невысокой частоты данной патологии большинство мировых клиник имеют небольшое количество наблюдений (не более нескольких десятков) хирургического лечения первичных опухолей трахеи.

По данным проведенного J.F. Regnard (1996) многоцентрового исследования в 26 медицинских клиниках Европы на основе рассылки опросников были

получены данные о 208 оперированных больных и проведен их ретроспективный анализ [20].

При этом в последние годы на фоне совершенствования эндоскопических методик и лучевой терапии отмечается снижение количества хирургических операций при новообразованиях трахеи. Это обусловлено увеличением продолжительности жизни пациентов и повышением ее качества при эндоскопических вмешательствах в сочетании с лучевой терапией, а также высокой трудоемкостью операций на трахее у пациентов с новообразованиями трахеи.

В Российской Федерации наибольшим опытом хирургического лечения пациентов с опухолевыми заболеваниями трахеи располагает В.П. Харченко. В ФГБУ «Российский научный центр рентгенорадиологии» прооперирован 201 пациент со злокачественными образованиями трахеи, из них 96 радикальных резекций трахеи произведено по поводу аденокистозного рака трахеи [21].

В клинике М.И. Перельмана прооперировано 156 пациентов со злокачественными или доброкачественными образованиями трахеи, из них 46 радикальных резекций трахеи было произведено по поводу аденокистозного рака [10, 22].

Наибольшим опытом хирургического лечения аденокистозного рака трахеи из зарубежных клиник располагает Н.С. Grillo (1990), который провел анализ 60 радикальных резекций по поводу аденокистозного рака трахеи [23].

Клиника Торонто представила результаты 26 радикальных резекций по поводу аденокистозного рака трахеи за 20-летний период (1963–1983). Остальные описанные в литературе наблюдения составляют от 10 до 15 операций в одной клинике [24, 25].

В настоящее время в литературе существенно меньше публикаций, посвященных хирургическим резекциям при аденокистозном раке трахеи, что связано с неудовлетворенностью результатами лечения и развитием эндоскопических методик (эндоскопическая канализация трахеи с последующей лучевой терапией). Также изменилось отношение к применению лучевой терапии при данном заболевании. Ранее считалось, что аденокистозный рак трахеи является радиорезистентным и применение лучевой терапии бесперспективно.

В 2000-х гг. появились данные о 80% 5-летней выживаемости после лучевого лечения аденокистозного рака трахеи. В связи с этим авторы предлагают считать лучевую терапию методом выбора при любой форме аденокистозного рака [26, 27].

При этом многие хирурги остаются сторонниками радикальных циркулярных резекций трахеи при аденокистозном раке, считая их наиболее эффективным и радикальным методом лечения [28, 29].

В литературе существует дискуссия по поводу значимости поражения лимфатических узлов регионарных групп и выявления опухолевых клеток на границе резекции при прогнозировании отдаленных результатов.

В своей работе Н.С. Grillo (2004) не получил подтверждения, что эти факторы оказали существенное влияние на отдаленные результаты лечения. Однако следует отметить, что он не проводил разделение пациентов на группы с только хирургическим лечением и комбинированным лечением (радикальная резекция с последующей лучевой терапией), и большинству больных проводилась послеоперационная лучевая терапия [30].

В работе J.F. Regnard и соавт. (1996) были получены данные о незначительной разнице в 5-летней выживаемости после радикальных резекций трахеи в случае отсутствия метастазов в регионарные лимфатические узлы и опухолевых клеток в зоне резекции. Однако также отмечается, что из-за небольшого количества пациентов достоверных различий получить не удалось [31].

Наиболее значимым фактором при проведении радикальных циркулярных резекций трахеи является протяженность опухолевого поражения. Большинство авторов указывают, что при распространении опухолевого процесса по трахее крайне затруднено выполнение радикальных оперативных вмешательств. Распространенность поражения свыше 15 полуколец (7,5 см) делает такие операции практически невыполнимыми. В настоящее время имеются только единичные описания радикальных операций на трахее и при такой распространенности [30, 32, 33].

Также важным фактором является требование оставлять интактными боковые поверхности трахеи при операции, что обусловлено особенностями кровоснабжения трахеи и расположением питающих сосудов. Это достаточно часто вызывает затруднения при мобилизации органа. Невыполнение этого условия приводит к ишемии и некрозу соответствующего конца трахеи и развитию несостоятельности анастомоза [33]. Технические трудности с выполнением радикальных резекций достаточно часто делают методом выбора паллиативное органосохраняющее лечение, при котором применяются эндоскопические технологии в комбинации с лучевой терапией или химиотерапией. По данным литературы при отсутствии радикального лечения средняя продолжительность жизни пациентов составляет около года, причем качество их жизни невысокое [34, 35].

Наибольшие трудности представляет радикальное лечение больных с аденокарциномой верхней трети трахеи и дистального отдела гортани. Чаще всего в данном случае накладывают трахеостому или

устанавливают Т-образный стент, назначают химиотерапию или лучевую терапию. В большинстве случаев данное лечение оказывается неэффективным и существенно влияет на качество жизни [36, 37].

К гортанно-трахеальным локализациям относятся опухоли верхней трети трахеи с вовлечением подскладочного пространства гортани от голосовых складок до нижнего края перстневидного хряща [38].

Из-за сложной анатомии и функциональных особенностей гортани на этом уровне, а также возможности повреждения возвратных гортанных нервов и риска возникновения на уровне анастомоза рецидива циркулярные резекции трахеи не выполняются выше перстневидно-трахеального соединения [39].

Pearson и соавт. в 1975 г. разработали и предложили метод циркулярной гортанно-трахеальной резекции с удалением переднебоковых стенок и задней поверхности (печатки) перстневидного хряща и формированием первичного перстневидно-трахеального анастомоза ниже голосовой щели. Данная методика позволяет реконструировать область гортани ниже голосовой щели и устранить первичное поражение [40].

Гортанно-трахеальная резекция является основным методом хирургического лечения злокачественных новообразований дистального отдела гортани и верхней трети трахеи [37].

По данным Н.А. Gaissent и соавт. хирургическое лечение позволяет достичь 79% 5-летней выживаемости и 64% 10-летней выживаемости при летальности в районе 16% [39].

Риск послеоперационных осложнений в связи протяженными резекциями вследствие необходимости удаления опухоли в пределах здоровых тканей может достигать 36% [37].

Крайне важную роль при проведении циркулярных резекций трахеи играет анестезиологическое обеспечение. Это обусловлено необходимостью выполнения длительных оперативных вмешательств на вскрытых дыхательных путях и работы на них в течение значительного промежутка времени в условиях искусственного выключения из дыхания легких.

Отдельные авторы выполняли резекции трахеи в условиях экстракорпорального кровообращения [41]. Однако из-за сложного технического обеспечения данный метод не нашел широкого клинического применения.

По данным Н.С. Grillo методом выбора анестезиологического пособия является искусственная вентиляция легких. Преимущество ее в отсутствии дополнительного риска и полноте контроля состояния больного [42].

Предпринимались попытки проведения оперативных вмешательств на открытой трахее (Б.В. Петровский) в условиях гипербарической оксигенации,

но ввиду дороговизны этого метода и технических сложностей в широкую клиническую практику это не было внедрено [43].

Раньше большинство хирургов и анестезиологов считали ведущим методом анестезиологического обеспечения при операциях на трахее интубационный ингаляционный наркоз.

Особенность ИВЛ при проведении операций на трахее заключается в невозможности ее проведения через интубационную трубку, введенную изначально в трахею, на всех этапах операции. Пересечение трахеи требует поочередной вентиляции путем введения стерильной трубки через операционное поле в дистальный конец соответствующего воздухопроводящего пути после отсечения его удаляемого участка. Данный способ получил название «шунт-дыхание» и нашел широкое применение в практике [44].

На современном этапе наиболее удобным в клинической практике является метод высокочастотной искусственной вентиляции легких при бронхоскопических манипуляциях в просвете трахеи [45]. Эта методика заменила способ ИВЛ «шунт-дыхание» на этапах формирования анастомоза.

Метод высокочастотной искусственной вентиляции легких исключает помехи в виде наличия интубационных трубок в операционном поле и препятствует ингаляции крови из операционного поля (бронх закрыт, давление в нем положительное), при этом искусственную вентиляцию легких возможно проводить в незамкнутом дыхательном контуре. В то же время тонкий катетер не препятствует манипуляциям по формированию анастомоза, как это происходит при использовании интубационной трубки, которая близко примыкает к стенкам трахеи и закрывает ее просвет [46].

Метод высокочастотной искусственной вентиляции легких наиболее важен в случаях формирования анастомоза при резекции трахеи. При этом, учитывая возможность развития осложнений (баротравма легкого, повреждение кислородом слизистой оболочки трахеи и бронхов), продолжительность применения данного метода необходимо ограничить 30–40 минутами, то есть тем сроком, который требуется на наложение анастомоза [47].

Применение высокочастотной искусственной вентиляции легких решает важные задачи по обеспечению процессов дыхания при незамкнутом контуре и повышению комфортности работы хирургов [48].

Нужно учитывать, что при циркулярных резекциях трахеи могут встречаться различные осложнения в послеоперационном периоде [49].

В большинстве работ, к сожалению, не приводятся отдельные данные о послеоперационных осложнениях при аденокистозном раке трахеи. Послеоперационные осложнения оцениваются в комплексе по всей

группе злокачественных опухолей, а иногда и в сочетании со стенозами другого происхождения.

Н.С. Grillo в своей работе показал, что риск интраоперационных и послеоперационных осложнений после резекций при аденокистозном раке трахеи составляет 13,3% (8 пациентов из 60). При этом у большинства больных (7 пациентов) непосредственной причиной смерти явилась дыхательная недостаточность; из них у 3 — вследствие несостоятельности швов анастомоза, у 3 — пневмонии, отека легких — у одного, и еще у одного больного причиной смерти было аррозивное кровотечение из брахиоцефальной артерии [50].

При изучении отдаленных результатов лечения больных аденокистозным раком трахеи по данным Н.С. Grillo медиана жизни у пациентов, получивших хирургическое или комбинированное лечение, составила 118 мес, а у пациентов, получавших только лучевую терапию, — 28 мес [50].

Автор указывает, что из-за проведения лучевой терапии в различных медицинских учреждениях достоверно оценить эффект применения лучевой терапии (самостоятельно или как элемента комбинированного лечения) было невозможно, но вследствие склонности данной опухоли к распространению на значительном протяжении считает ее обязательным компонентом в комплексном лечении аденокистозного рака трахеи.

По данным популяционных исследований, проведенных в Европе, 5-летняя выживаемость у пациентов со злокачественными новообразованиями трахеи не превышала 15%, а 10-летняя — 7% [51]. Применение радикального хирургического лечения у пациентов с аденокистозным раком трахеи позволяет увеличить 5-летнюю выживаемость до 50%, а 10-летнюю — до 35–50% [50].

Многие авторы указывают на большую вариабельность сроков рецидива и появления метастазов при аденокистозном раке трахеи. В литературе нет единого мнения о тактике лечения аденокистозного рака трахеи при выявлении метастазов в легкие, но вследствие медленных темпов их прогрессирования по данным F.G. Pearson, T.R.J. Todd и J.D. Cooper они не являются противопоказанием к радикальной циркулярной резекции трахеи [52].

Таким образом, на сегодняшний день в литературе нет единого представления о тактике лечения аденокистозного рака трахеи. Данный вопрос требует дальнейшего изучения и проведения исследований.

Клиническое наблюдение

Больная К., 32 лет, поступила в клинику на хирургическое торакальное отделение 27.02.2006 г. с диагнозом: аденокистозный рак средней трети трахеи.

При поступлении состояние больной тяжелое. Дыхание стридорозное, затруднено на выдохе. Пациентка может находиться в кровати в полусидячем положении. Мышцы шеи и верхней половины грудной клетки активно участвуют в акте дыхания.

Из анамнеза известно, что больна около шести лет, когда появилось ощущение нехватки воздуха, одышка при физической нагрузке. В одном из городских стационаров города Санкт-Петербурга был установлен диагноз: бронхиальная астма. В течение всех этих лет получала гормональную терапию и противовоспалительную терапию в малых дозах.



Рис. 1. Эндоскопическая картина до операции: обтурация просвета трахеи опухолью 3-й степени

20.02.2006 поступила на терапевтическое отделение с диагнозом: некупирующийся приступ бронхиальной астмы.

С учетом нетипичного течения бронхиальной астмы выполнена фибробронхоскопия. Заключение: опухоль средней трети трахеи, перекрывающая ее просвет на 3/4 ее диаметра. Взята биопсия. Переведена на хирургическое торакальное отделение.

Фибробронхоскопия: на уровне 6–7-го полукольца трахеи выявлена бугристая опухоль, практически полностью перекрывающая ее просвет. Диаметр просвета около 4–5 мм. Протяженность опухоли не определялась ввиду угрозы асфиксии (рис. 1).

При многосрезовой компьютерной томографии (МСКТ) грудной полости выявлено, что опухоль начинается чуть ниже яремной вырезки (шестое полукольцо трахеи). Протяженность опухоли около 5,5 см, свободно до бифуркации трахеи около восьми полуколец (рис. 2, 3).

02.03.2006 выполнена операция: циркулярная резекция средней и нижней трети трахеи.

Анестезию и ИВЛ проводили в соответствии с заранее разработанным протоколом, в котором учитывали последовательность различных методов вентиляции в зависимости от этапа операции. На этапе пересечения трахеи и разобщения дыхательных путей применили нормочастотную искусственную вентиляцию легких («Спирон»-601, Россия) с частотой 20–30 циклов в минуту, диаметром катетера 1,2 мм, соотношением вдоха и выдоха 1:2, рабочим давлением 2–3 кгс/см².

Выполнили полную продольную стернотомию. Провели мобилизацию трахеи, учитывая ее сегментарное кровоснабжение и особенности иннервации. Протяженность опухоли около 5 см (рис. 4).

Отступив от опухоли в дистальном и проксимальном направлении на два полукольца, произвели циркулярную резекцию трахеи протяженностью около 6 см.

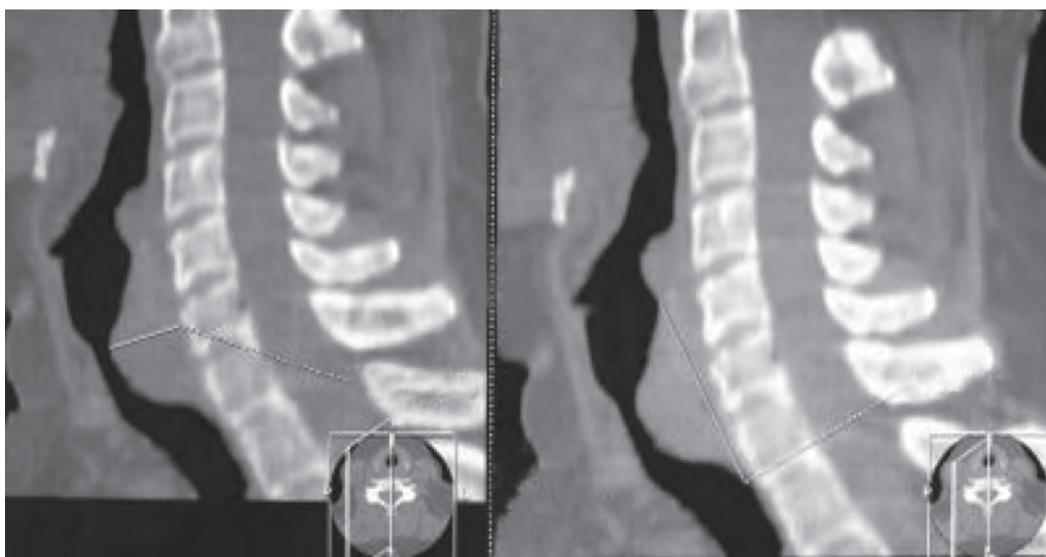


Рис. 2. МСКТ. Сагиттальная реконструкция. В средней и нижней трети трахеи определяется объемное образование протяженностью 5 см, суживающее просвет трахеи до 5 мм

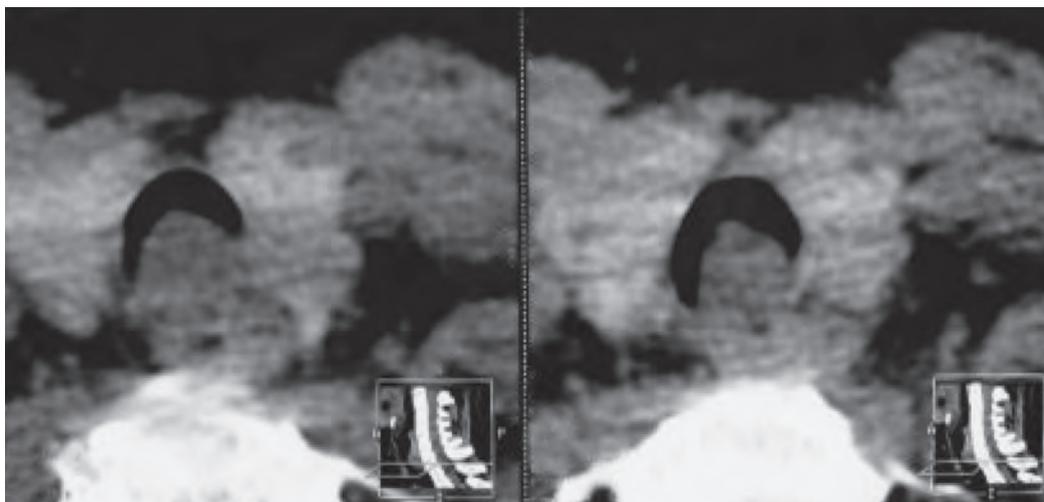


Рис. 3. МСКТ. Аксиальные срезы в мягкотканном окне. Объемное образование в трахее, суживающее просвет трахеи до 5 мм

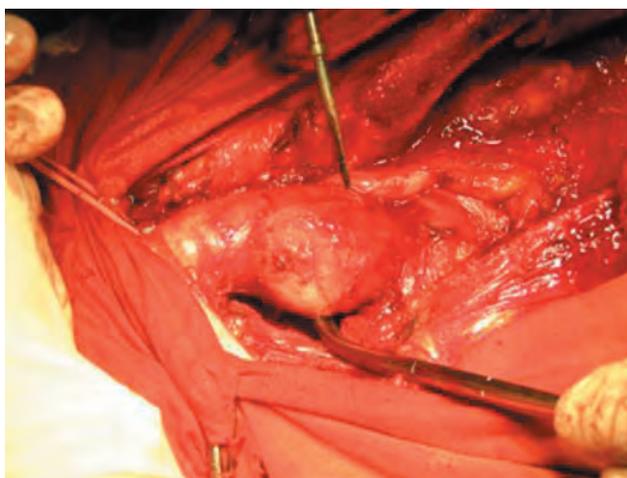


Рис. 4. Мобилизация трахеи вместе с опухолью

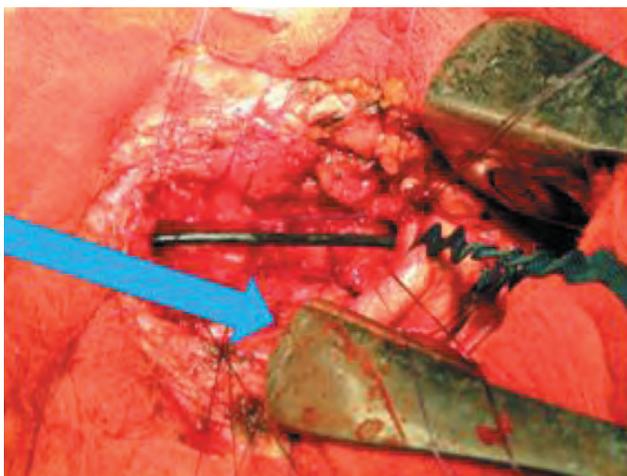


Рис. 5. Формирование трахеотрахеального анастомоза при продолжающейся нормочастотной искусственной вентиляции легких

Хирургический анастомоз формировали, не прерывая ИВЛ через катетер, заведенный в интубационную трубку, которую подтянули выше области оперативного вмешательства (рис. 5).

Послеоперационный период протекал гладко. При фибробронхоскопии анастомоз сохранен, без признаков сужения (рис. 6).

В послеоперационном периоде через 2 мес после операции проведен курс дистанционной лучевой терапии 40 Гр, разовая доза 2 Гр (ежедневно).

В течение 6 лет больная наблюдалась в клинике. На МСКТ (рис. 7) и при бронхоскопии каждые 6 мес данных, свидетельствующих о рецидиве, не получено.

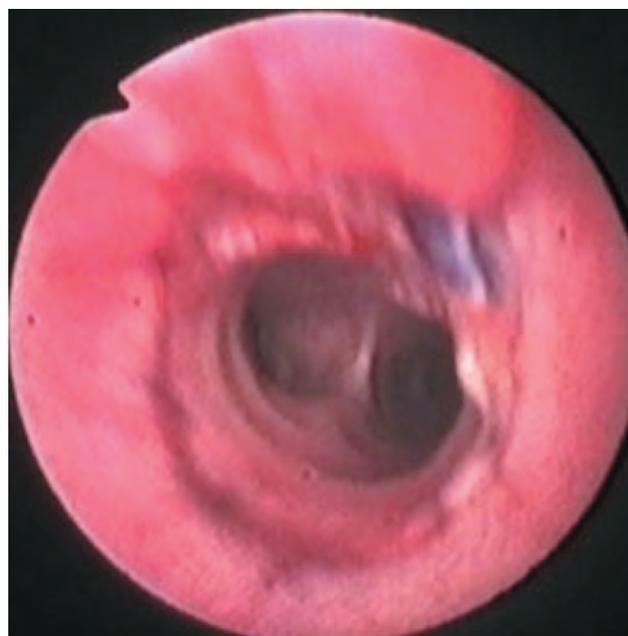


Рис. 6. Эндоскопическая картина на 7-е сутки после операции. Трахеотрахеальный анастомоз с герметичными швами без признаков воспаления

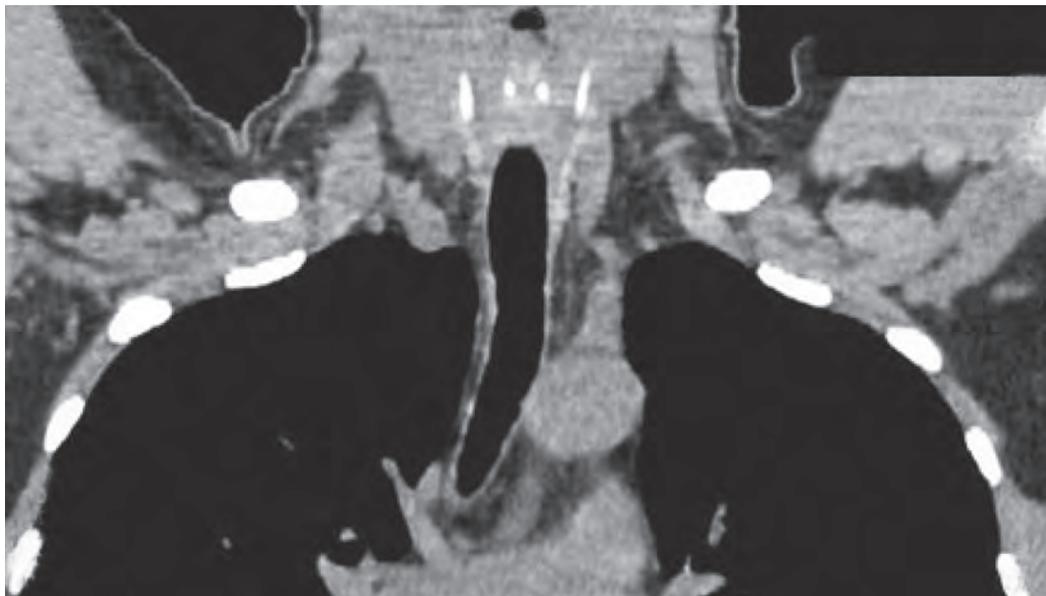


Рис. 7. МСКТ пациентки после операции. Фронтальная реконструкция. Пройодимость трахеи восстановлена

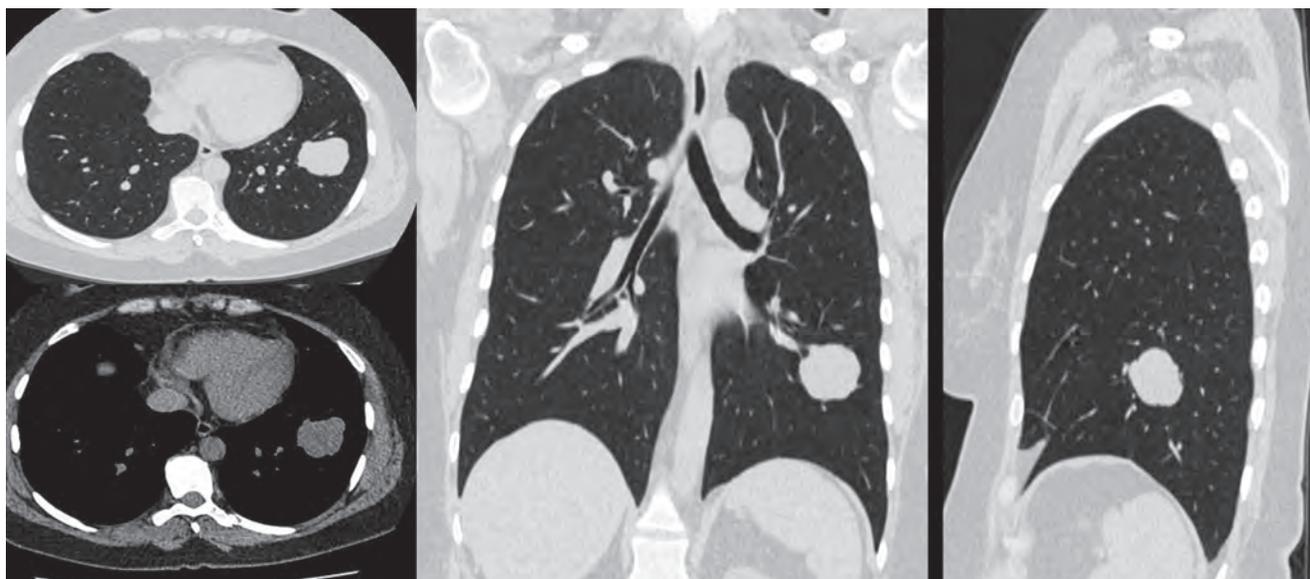


Рис. 8. Контрольная МСКТ пациентки через 8 лет после операции на трахее. Мягкотканное однородное образование размером 3,0 см в нижней доле левого легкого

Затем пациентка не обследовалась в течение двух лет. При обращении в 2014 г. на компьютерной томограмме выявлено округлое образование в нижней доле левого легкого размерами 3,0×3,0 см, с четкими, несколько полициклическими контурами, мягкотканной плотности. Заключение: периферическое новообразование левого легкого (рис. 8).

30.10.2014 проведена операция: удаление нижней доли левого легкого. Послеоперационный период гладкий.

При иммуногистохимическом исследовании — метастаз аденокистозного рака. В опухолевых клетках позитивная реакция с виментином, S100, CK-pan, P63-позитивная реакция в части опухолевых клеток. GFAP-негативная реакция.

Таким образом, рецидив аденокистозного рака трахеи в виде метастаза в легкое наступил через 8 лет. Местный рецидив в зоне анастомоза не выявлен.

В течение 4 лет после операции по поводу рецидива новообразования пациентке каждые 6 мес выполняются фибробронхоскопия и МСКТ грудной и брюшной полости. Данных, свидетельствующих о прогрессировании, не получено.

Заключение

Течение аденокистозного рака трахеи крайне непредсказуемо: от раннего рецидива в зоне анастомоза до поздних, когда через много лет после операции выявляются отдаленные метастазы.

Сопоставление данных литературы и нашего клинического наблюдения позволяет рекомендовать циркулярную резекцию трахеи с последующей лучевой терапией как единственный радикальный метод лечения. В дальнейшем больные должны наблюдаться у онколога в течение всей жизни.

Список литературы

- Po-Yi Yang, Maw-Sen Liu, Chih-Hung Chenl et al. Adenoid Cystic Carcinoma of the Trachea: a Report of Seven Cases and Literature Review // *Chang Gung Med. J.* 2005. Vol. 28. P. 357–363.
- Honings J., Gaissert H.A., Verhagen A.F. et al. Undertreatment OG Tracheal Carcinoma: Multidisciplinary Audit of Epidemiologic Data // *Ann. Surg. Oncol.* 2008. P. 247–251.
- Mahnke C.G., Werner J.A., Lippert B.M., Schluter E., Rudert H. Laryngorhinootologie. 1994. Vol. 73. N 8. P. 445–448.
- Sipila J., Pulkkinen J., Hujala K., Grenman R. Endoscopic lasersurgery in obstructive tracheal and bronchial tumors // An update. *Otolaryngol. Pol.* 2004. Vol. 58. N 1. P. 187–190.
- Pechoux L., Baldeyrou C., Ferreira I., Mahe M. Thoracic adenoid cystic carcinomas // *Cancer Radiother.* 2005. Vol. 9. P. 358–361.
- Honings J., Gaissert H.A., van der Heijden H.F. et al. Clinical aspects and treatment of primary tracheal malignancies // *Acta Otolaryngol.* 2010. Vol. 130. N 7. P. 763–872.
- Billroth T. Beiträge zur pathologishen histologie. Berlin: Reimer, 1858. VI. 2289.6 Taf.
- Adkins P.C., Izawa E.M. Resection of tacheal cylindroma using cardiopulmonary bypass // *Archives of surgery.* 1964. Vol. 318, N 3. P. 405–409.
- Cheung A.Y.C. Radiotherapy for primary carcinoma of the trachea // *Radiother. Oncol.* 1989. Vol. 14. P. 279–285.
- Перельман М.И., Бирюков Ю.В., Королева Н.С., Самохин А.Я. Клиника, диагностика и лечение стенозирующих заболеваний трахеи // *Клин. мед.* 1990. Т. 68, № 11. С. 3–6. *Perel'man M.I., Biryukov Yu.V., Koroleva N.S., Samohin A.Ya.* Klinika, diagnostika i lechenie stenoziruyushchih zabolevanij trahei // *Klin. med.* 1990. Т. 68, N 11. С. 3–6.
- Чхиквадзе В.Д., Кузьмин И.В. Комбинированное лечение опухолей трахеи // *Мед. радиология.* 1984. Т. 29, № 10. С. 53–55. *Chkhikvadze V.D., Kuz'min I.V.* Kombinirovannoe lechenie opuholej trahei // *Med. radiologiya.* 1984. Т. 29, N 10. С. 53–55.
- Яровая Н.Ю. Комплексная рентгено-морфологическая диагностика органических стенозов трахеи: дис. ... канд. мед. наук. М., 1996. *Yarovaya N.Yu.* Kompleksnaya rentgeno-morfologicheskaya diagnostika organicheskikh stenozov trahei: dis. ... kand. med. nauk. Moscow, 1996.
- Малюков А.Е. Клиника, диагностика и лечение больных аденокистозным раком трахеи: дис. ... канд. мед. наук. М., 1987. *Malyukov A.E.* Klinika, diagnostika i lechenie bol'nyh adenokistoznum rakom trahei: dis. ... kand. med. nauk. Moscow, 1987.
- Харченко В.П. Срочная морфологическая диагностика опухолей трахеи в процессе рентгеноэндоскопического исследования // *Архив патологии.* 1996. № 1. С. 35–41. *Harchenko V.P.* Srochnaya morfologicheskaya diagnostika opuholej trahei v processe rentgenoehndoskopicheskogo issledovaniya // *Arhiv patologii.* 1996. N 1. С. 35–41.
- Pearson F.G., Thompson D.W., Weissberg D. et al. Adenoid cystic carcinoma of the trachea // *Ann. Thorac. Surg.* 1974. Vol. 18. P. 16–29.
- Петровский Б.В., Перельман М.И., Королева Н.С. Трахеобронхиальная хирургия. М., 1978. 295 с. *Petrovskij B.V., Perel'man M.I., Koroleva N.S.* Traheobronhial'naya hirurgiya. Moscow, 1978. 295 s.
- Бирюков Ю.В., Отс О.Н. Хирургическое лечение злокачественных опухолей трахеи и бронхов у лиц молодого возраста // *Вопр. онкол.* 1984. Т. 30, № 10. С. 25–30. *Biryukov Yu.V., Ots O.N.* Hirurgicheskoe lechenie zlokachestvennyh opuholej trahei i bronhov u lic molodogo vozrasta // *Vopr. onkol.* 1984. Т. 30, N 10. С. 25–30.
- Velez Jo E.T., Morehead R.S. Hemoptysis and dispnea in a 67-year-old man with a normal chest radiograph // *Chest.* 1999. Vol. 116, N 3. P. 803–807.
- Мартынов Г.Б., Евдокимов П.П., Середина М.И. Опухоли трахеобронхиального дерева, протекающие под маской бронхиальной астмы // *Врач. дело.* 1980. № 4. С. 22–24. *Martynov G.B., Evdokimov P.P., Seredina M.I.* Opuholi traheobronhial'nogo dereva, protekayushchie pod maskoj bronhial'noj astmy // *Vrach. delo.* 1980. N 4. С. 22–24.
- Regnard J.F., Fourquier P., Levasseur P. Results and prognostic factors in resections of primary tracheal tumors a multicenter retrospective study // *J. Thorac. Cardiovasc Surg.* 1996. Vol. 111, N 4. P. 808–814.
- Харченко В.П., Гваришвили А.А., Паньшин Г.А. и др. Опухоли трахеи: хирургическое и комбинированное лечение // *Высокие технологии в онкологии. Материалы V Всероссийского съезда онкологов. Казань, 2000. Т. 2. С. 39–41. Harchenko V.P., Gvarishvili A.A., Pan'shin G.A. i dr.* Opuholi trahei: hirurgicheskoe i kombinirovannoe lechenie // *Vysokie tekhnologii v onkologii. Materialy V Vserossijskogo s'ezda onkologov. Kazan, 2000. Т. 2. С. 39–41.*
- Перельман М.И. Хирургия трахеи. М., 1972. 208 с. *Perel'man M.I.* Hirurgiya trahei. Moscow, 1972. 208 s.
- Grillo H.C., Mathisen D.J. Primary tracheal tumors. Treatment and results // *Ann. Thorac. Surg.* 1990. Vol. 49, N 1. P. 69–77.
- Gaissert H.A., Grillo H.C., Shandmehr M.B. et al. Uncommon primary tracheal tumors // *Ann. Thorac. Surg.* 2006. Vol. 82, N 1. P. 268–272; discussion 272–273.
- Honings J., Gaissert H.A., van der Heijden H.F. et al. Clinical aspects and treatment of primary tracheal malignancies // *Acta Otolaryngol.* 2010. Vol. 130, N 7. P. 763–772.
- Wood D.E., Liu Y.H., Vallieres E. et al. Airway stenting for malignant and benign tracheobronchial stenosis // *Ann Thorac Surg.* 2003. Vol. 76. P. 167–174.
- Bolliger C.T., Breitenbuecher A., Brutsche M. et al. Use of studded Polyflex stents in patients with neoplastic obstructions of the central airways // *Respiration.* 2004. Vol. 71, N 1. P. 83–88.
- Yamamoto K., Miyamoto Y., Ohsumi A. et al. Surgical results of carinal reconstruction: an alternative technique for tumors involving the tracheal carina // *Ann. Thorac. Surg.* 2007. Vol. 84, N 1. P. 216–200.
- Cordos I., Bolca C., Paleru C. et al. Sixty tracheal resections — single center experience // *Interactive Cardio Vascular and Thoracic Surgery.* 2009. N 8. P. 62–65.
- Grillo H.C. Urgent Treatment of Tracheal Obstruction // *Surgery of the trachea and Bronchi.* London: BC Decker Inc Hamilton, 2004. 475 p.

31. Regnard J.F., Fourquier P., Levasseur P. Results and prognostic factors in resections of primary tracheal tumors a multicenter retrospective study // *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 1996. Vol. 111, N 4. P. 808–814.
32. Перельман М.И., Королева Н.С., Бирюков Ю.В. и др. Первичные опухоли трахеи: диагностика и хирургическое лечение. Хирургия. 1998. № 6. С. 58–60. *Perel'man M.I., Koroleva N.S., Biryukov Yu.V.* Pervichnye opuholi trahei: diagnostika i hirurgicheskoe lechenie // *Hirurgiya.* 1998. N 6. P. 58–60.
33. Андреасян А.Г. Мобилизация трахеи, легких и сердечно-сосудистого комплекса при протяженных циркулярных резекциях трахеи: дис. ... канд. мед. наук. СПб., 2005. 154 с. *Andreasyan A.G.* Mobilizatsiya trahei, legkih i serdechno-sosudistogo kompleksa pri protyazhennykh tsirkulyarnykh rezektsiyah trahei: diss. ... kand. med. nauk. St. Petersburg, 2005. 154 s.
34. Crosta C., Spaggiari L., De Stefano A. et al. Endoscopic argon plasma coagulation for palliative treatment of malignant airway obstructions: early results in 47 cases // *Lung Cancer.* 2001. Vol. 33 P. 75–80.
35. Wood D.E. Tracheal and Bronchial Stenting. London: BC Decker Inc. Hamilton, 2004. 763 p.
36. Васильев И.В. Клинико-морфологическая характеристика и особенности лечения злокачественных опухолевых поражений трахеи, сопровождающихся ее стенозом: дис. ... канд. мед. наук. СПб., 2008. 114 с. *Vasil'ev I.V.* Kliniko-morfologicheskaya harakteristika i osobennosti lecheniya zlokachestvennykh opuholevykh porazheniy trahei, soprovozhdayushchihysya ee stenozom: dis. ... kand. med. nauk. St. Petersburg, 2008. 114 s.
37. Мосин И.В., Волчков В.А., Горохов А.А. и др. Хирургическое лечение первичных злокачественных опухолей трахеи // *Вестник хирургии им. Грекова.* 2012. Т. 171, № 6/2. С. 32–34. *Mosin I.V., Volchkov V.A., Gorohov A.A. i dr.* Hirurgicheskoe lechenie pervichnykh zlokachestvennykh opuholej trahei // *Vestnik hirurgii im. Grekova.* 2012. T. 171, N 6/2. S. 32–34.
38. Subremanlam T., Lennon P., Kinsella J., O'Neill S.P. Laryngeal preserved tracheal adenoid cystic carcinoma // *Case Rep. Otolaryngol.* Mar. 2015.
39. Gaissent H.A., Grillo H.C., Shadmehr B.M. et al. Laryngotracheoplastic resection for primars tumors of the proximal airway // *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 2005. Vol. 129, N 5. P. 1006–1009.
40. Pearson F.G., Cooper J.D., Nelems J.M., Van Nostrand A.W. Primary tracheal anastomosis after resection of the cricoid cartilage with preservation of recurrent laryngeal nerves // *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 1975. Vol. 70, N 5. P. 806–816.
41. Neville W.E., Balanowski J.P., Kotia G.G. Clinical experience with the silicone tracheal prosthesis // *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 1990. Vol. 99, N 4. P. 604–612, discussion 612–613.
42. Grillo H.C. et al. The trachea // *Ann. Thorac. Surg.* 1990. Vol. 49, N 5. P. 845–846.
43. Перельман М.И., Ефунд С.Н. Гипербарическая оксигенация в трахеобронхиальной хирургии // *Хирургия.* 1981. № 2. С. 31–
38. *Perel'man M.I., Efundi S.N.* Giperbaricheskaya oksigenatsiya v traheobronhial'noj hirurgii // *Hirurgiya.* 1981. № 2. S. 31–38.
44. Выжигина М.А. Анестезиологическое обеспечение операций на трахее и ее бифуркации // Тезисы докладов Всесоюзного симпозиума по хирургии трахеи и бронхов. М., 1986. С. 37–39. *Vyzhigina M.A.* Anesteziologicheskoe obespechenie operatsiy na trahee i ee bifurkatsii // *Tezisy dokladov Vsesoyuznogo simpoziuma po hirurgii trahei i bronhov.* Moscow, 1986. S. 37–39.
45. Лукомский Г.И., Шулуток М.Л., Виннер М.Г., Овчинников А.А. Бронхопальмонология. М.: Медицина, 1982. 400 с. *Lukomskij G.I., Shulutko M.L., Vinner M.G., Ovchinnikov A.A.* Bronhopul'monologiya. Moscow: Medicina, 1982. 400 s.
46. Харченко В.П., Сидоров А.И., Серая Э.В. Высококачественная искусственная вентиляция легких в реконструктивной хирургии трахеи и ее бифуркации // *Анестезиология и реаниматология.* 1992. № 1. С. 11–13. *Harchenko V.P., Sidorov A.I., Seraya E.V.* Vysokochastotnaya iskusstvennaya ventilyatsiya legkih v rekonstruktivnoj hirurgii trahei i ee bifurkatsii // *Anesteziologiya i reanimatologiya.* 1992. N 1. S. 11–13.
47. Сачек М.Г., Харченко В.П., Аничкин В.В. Реконструктивная хирургия трахеи и бронхов. Научный обзор (обзорная информация) // *Медицина и здравоохранение. Сер. Хирургия.* М., 1987. 64 с. *Sachek M.G., Harchenko V.P., Anichkin V.V.* Rekonstruktivnaya hirurgiya trahei i bronhov. Nauchnyj obzor (obzornaya informatsiya) // *Medicina i zdravoohranenie. Ser. Hirurgiya.* Moscow, 1987. 64 s.
48. Волчков В.А., Иванов А.Т., Мосин И.В. и др. Струйная чрескатетерная искусственная вентиляция легких при хирургическом лечении рубцовых стенозов трахеи // *Анестезиология и реаниматология.* 2007. № 3. С. 45–48. *Volchkov V.A., Ivanov A.T., Mosin I.V. et al.* Strujnaya chreskateternaya iskusstvennaya ventilyatsiya legkih pri hirurgicheskom lechenii rubcovykh stenozov trahei // *Anesteziologiya i reanimatologiya.* 2007. N 3. S. 45–48.
49. Харченко В.П., Паньшин Г.А., Гваривили А.А. и др. Лечение злокачественных опухолей трахеи // Тезисы докладов VIII Всероссийского съезда рентгенологов и радиологов. Челябинск — Москва, 2001. С. 56–57. *Harchenko V.P., Pan'shin G.A., Gvarishvili A.A. i dr.* Lechenie zlokachestvennykh opuholej trahei // *Tezisy dokladov VIII Vserossijskogo s'ezda rentgenologov i radiologov.* Chelyabinsk — Moscow, 2001. S. 56–57.
50. Grillo H.C. Surgery of the trachea and Bronchi. London: BC Decker Inc Hamilton, 2004. 475 p.
51. Мороз Г.С., Корицкий Г.И., Бельма Л.Т. и др. Лечение злокачественной опухоли трахеи // *Клин. хир.* 1990. № 10. С. 62–64. *Moroz G.S., Korickij G.I., Bel'ma L.T. i dr.* Lechenie zlokachestvennoj opuholi trahei // *Klin. hir.* 1990. N 10. S. 62–64.
52. Pearson F.G., Todd T.R.J., Cooper J.D. Experience with primary neoplasms of the trachea and carina // *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 1984. Vol. 88, N 4. P. 511–518.

Поступила в редакцию 18.06.2018 г.

Сведения об авторах:

Мосин Игорь Валентинович — доктор медицинских наук, профессор, заведующий хирургическим онкологическим торакальным отделением Санкт-Петербургского клинического научно-практического центра специализированных видов медицинской помощи (онкологического); 197758, Санкт-Петербург, пос. Песочный, Ленинградская ул., д. 68А; e-mail: ivmosin@mail.ru;
Гаврилов Павел Владимирович — кандидат медицинских наук, ведущий научный сотрудник, руководитель направления «Лучевая диагностика» Санкт-Петербургского научно-исследовательского института физиопульмонологии; 191036, Санкт-Петербург, Лиговский пр., д. 2-4; e-mail: spbnifrentgen@mail.ru;
Мосина Нина Валерьевна — кандидат медицинских наук, врач-онколог Санкт-Петербургского научно-исследовательского института физиопульмонологии; 191036, Санкт-Петербург, Лиговский пр., д. 2-4; e-mail: ninamosina@mail.ru.