УДК 616.71-006.33

# Рецидивирующая хондросаркома позвоночника (клиническое наблюдение и обзор литературы)

Д.В. Куклин, М.В. Беляков, Л.А. Дорофеев, И.Г. Роднова, А.Ю. Мушкин

Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии

# Recurrent spinal chondrosarcoma (clinical case and literature review)

D. Kuklin, M. Belyakov, L. Dorofeev, I. Rodnova, A. Mushkin

St. Petersburg State Research Institute of Phthisiopulmonology

© Коллектив авторов, 2017 г.

### Резюме

В статье обобщены данные литературы, касающиеся одного из видов злокачественной опухоли позвоночника — первичной хондросаркомы. Представлено собственное клиническое наблюдение первичной хондросаркомы позвоночника у юноши. Наличие неврологических расстройств и компрессии спинного мозга явилось показанием к повторным операциям, несмотря на неизбежный рецидив опухоли. Обсуждаются сложности принятия решения по тактике лечения.

**Ключевые слова:** хондросаркома, позвоночник, хирургическое лечение, рецидив

## **Summary**

The literature data about primary malignant chondrosarcoma are discuss in the article. The own clinical case has concern the recurrent primary malignant spinal chondrosarcoma in young man with spinal instability and compression of spinal cord complicated by myelopathy. The most difficult question if such situation is a decision making process including confirmed indications for surgery despite non-satisfactory expected treatment prognosis.

**Keywords:** chondrosarcoma, spine, spinal surgery, recurrent tumor, prognosis

### Введение

Хондросаркома (chondrosarcoma) занимает особое положение среди опухолей костей, составляя в структуре первичных злокачественных опухолей скелета от 10 до 26,7% [1, 2]. Она отличается неоднозначным злокачественным потенциалом — от низкого, с медленным локальным ростом, до высокого, с быстрым ростом, метастазированием и опухолевой интоксикацией. В свою очередь, хондросаркома позвоночника, являясь относительно редкой, в силу особенностей своего течения и резистентности к химио- и лучевой терапии, нередко ставит перед хирургом трудно раз-

решимый вопрос: отказаться от ее активного лечения или проводить операцию не столько по онкологическим, сколько по клинико-социальным показаниям, заведомо зная о неизбежном рецидиве заболевания [3, 4]. Принятие решения становится еще более сложным при развитии у пациента клинических проявлений сдавления спинного мозга.

Наше наблюдение позволяет еще раз обратить внимание на эту своеобразную опухоль, при этом целью публикации является не только представление редкой вертебральной патологии, но и сложности и неоднозначности принятия в этих случаях тактических решений.

## Клиническое наблюдение

Пациент К., 22 лет, поступил в отделение патологии позвоночника СПб НИИФ 02.02.2016 с жалобами на умеренные боли в межлопаточной области и слабость в ногах.

Чувство дискомфорта и жжения в межлопаточной области появились в возрасте 19 лет, по поводу чего пациент по месту жительства без лучевого обследования периодически получал лечение у мануального терапевта с диагнозом «дегенеративное заболевание позвоночника» с клиническим улучшением. Спустя 2 года (апрель 2015 г.) на фоне болевого синдрома родственники заметили припухлость в паравертебральной области на уровне верхнегрудного отдела позвоночника. При МРТ-исследовании было выявлено образование, разрушающее задние структуры позвонков  $\mathsf{Th}_{\text{п}}$ – $\mathsf{Th}_{\text{пу}}$  и распространяющееся паравертебрально и интраканально с компрессией спинного мозга (рис. 1).

02.06.2015 по месту жительства выполнена операция: по описанию — проведено удаление опухоли единым блоком, декомпрессия спинного мозга. При гистологическом исследовании операционного материала установлен диагноз хондросаркомы. Пациент выписан с клиническим выздоровлением (?). Однако уже через 2 мес (август 2015 г.) в зоне хирургического доступа появилось чувство дискомфорта, онемение и слабость в ногах. При контрольной МРТ обнаружен рецидив опухоли (рис. 2), в связи с чем 10.09.2015 проведено повторное удаление опухоли.

Визуализируется крупный опухолевый узел, замещающий задние структуры позвонка Th<sub>II</sub>, сдавливающий спинной мозг на этом уровне и распространяющийся каудально ретровертебрально до уровня Th<sub>IV</sub>.

Указаний на технику удаления опухоли (блоком?, по частям?, радикально?) при повторном вмешательстве в нашем распоряжении нет, однако уже через 1,5 мес после этой операции (ноябрь 2015 г.) при контрольном МРТ выявлен рецидив опухоли, в основном исходящий из тела позвонка Th<sub>"</sub>.

В клинику СПб НИИФ пациент поступил еще через 3 мес (февраль 2016 г.). При госпитализации: больной ходит без дополнительной опоры, движения в позвоночнике не ограничены. Пальпаторно паравертебрально справа на уровне  $\mathrm{Th}_{\mathrm{IV}}$  определяется плотное образование. Неврологическая симптоматика расценена как компрессионная миелопатия и представлена оживлением рефлексов с ног на фоне сохраненной силы с клонусами стоп, положительным симптомом Бабинского с обеих сторон. Чувствительные нарушения — гипестезия в дерматомах  $\mathrm{Th}_{4-6}$ . По данным МРТ определяется рецидив опухоли, исходящей из позвонка  $\mathrm{Th}_{\mathrm{II}'}$  с умеренным ростом в паравертебральные ткани и с компрессией спинного мозга, сопровождающейся лучевыми признаками миелопатии (рис. 3).

Патология оценена по стандартизованным вертебрологическим шкалам: болевой синдром соответствует 6/10 баллам по визуально-аналоговой шкале (ВАШ), неврологический статус по Frankel — типу D, нестабильность согласно адаптированной шкале нестабильности позвоночника (SINS) — 13 баллам. По Tomita распространение опухоли соответствует типу В (экстракостальное) и согласно классификации WBB опухоль располагается практически во всех 12 позвоночных секторах [5, 6].

Наличие неврологических нарушений и показатель SINS 13 указывают на хирургическую тактику как на наиболее обоснованную, несмотря на заведомо неизбежный продолженный рост (рецидив) опухоли. После







**Рис. 1.** Данные лучевого обследования пациента до операции: *a*, *б* — MPT; *в* — KT грудного отдела позвоночника

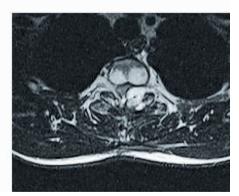




**Рис. 2.** МРТ грудного отдела позвоночника через 1 мес после первичного удаления опухоли. Определяется рецидив опухоли с компрессией спинного мозга







**Рис. 3.** МРТ грудного отдела позвоночника при поступлении в СПб НИИФ (февраль 2016 г.). Рецидив опухоли, исходящей из задних структур и тела Th<sub>II</sub>, вызывающей компрессию спинного мозга

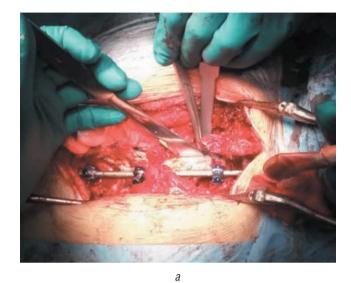
обсуждения с пациентом прогноза лечения принято согласованное решение о повторной операции.

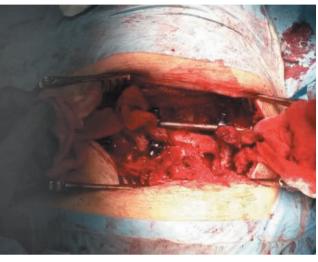
11.02.2016 произведена операция: удаление опухоли, спондилэктомия  $Th_{_{||}}$ , декомпрессия спинного мозга, передний спондилодез  $Th_{_{||}}$ – $Th_{_{|||}}$  титановой блок-решеткой, заполненной костным цементом, задняя инструментальная фиксация ламинарной системой на уровне

 $C_{_{VII}}$ — $Th_{_{IV}}$ . Операция выполнена из заднего доступа, при этом сначала удалены мягкие ткани с опухолью, прилежащие к заднему отделу позвоночника, и проведена его временная инструментальная фиксация, затем — удаление тела позвонка и передний спондилодез, и на последнем этапе — окончательная задняя фиксация (рис. 4).

Рана зажила первичным натяжением. В раннем послеоперационном периоде на фоне устраненной компрессии мозга (рис. 5) отмечено нарастание проявлений миелопатии в виде нижнего спастического парапареза с последующим частичным регрессом на фоне нейротропного лечения (церебролизин, кортексин,

антиоксиданты, сирдалуд, ЛФК) без применения сосудистой терапии, которая потенциально может стимулировать опухолевый рост. Пациент стал ходить с опорой на трость. Результат гистологического исследования операционного материала — светлоклеточная хондросаркома.





б



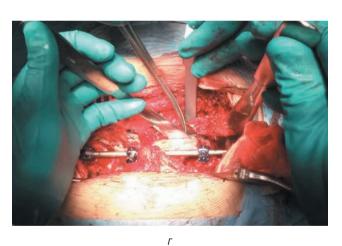
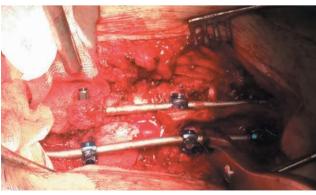


Рис. 4. Этапы операции: а — установка металлоконструкций; б — удаление позвонка Тh<sub>п</sub> с циркулярной декомпрессией спинного мозга, в, г — спондилодез титановой блок-решеткой, заполненной костным цементом; д — окончательная инструментальная фиксация позвоночника



Д





**Рис. 5.** Данные лучевого обследования (КТ) после реконструктивной операции. Тело и задние структуры позвонка Th<sub>II</sub> удалены (спондилэктомия). Передняя колонна стабилизирована блок-решеткой с костным цементом, задняя — восьмиопорной ламинарной CD-конструкцией

При контрольном MPT-исследовании через 8 мес после операции признаков рецидива опухоли не выявлено, сохраняются признаки миелопатии на уровне  $\mathrm{Th}_{_{||}}$  (рис. 6). В клиническом статусе сохраняется картина нижнего спастического парапареза (тип C, ходит с опорой на трость).

Спустя один год и 3 мес после операции, проведенной в клинике, у пациента возобновился болевой синдром в зоне хирургического доступа, без усугубления неврологического статуса. При контрольном МРТ выявлен рецидив опухоли с переднебоковой компрессией спинного мозга и узлами в мягких тканях спины (рис. 7).

При этом признаки отдаленных метастазов опухоли, прежде всего, в легочную ткань, у пациента продолжают отсутствовать на протяжении всего периода наблюдения.

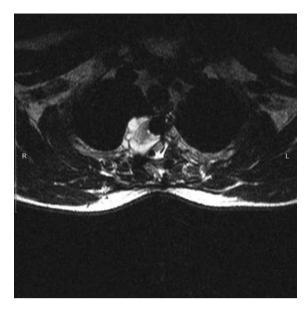
# Обсуждение результатов

Злокачественные опухоли костей, исходящие их хрящевой ткани, составляют достаточно большую группу. Их разделение на первичную, возникающую в первично неизмененной кости, и вторичную, развивающуюся из ранее имевшегося доброкачественного поражения, впервые предложено Phemister (1931) и имеет прогностическое значение: считается, что первичные опухоли чаще возникают у молодых людей и характеризуются более злокачественным течением. Вторичные хондросаркомы, возникшие при малигнизации диспла-



Рис. 6. МРТ грудного отдела позвоночника через 8 мес после реконструктивной операции. Признаков рецидива опухоли нет. Определяются послеоперационные изменения в области доступа. Миелопатический сигнал (глиоз?) на уровне Th<sub>III</sub>—Th<sub>IIV</sub>







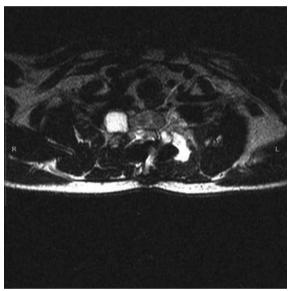




Рис. 7. МРТ позвоночника через 1 год 3 мес после операции, проведенной в СПб НИИФ. Рецидив опухоли: очаги опухолевого роста на уровне реконструкции и паравертебрально

стических процессов — хондроматоза костей (болезнь Оллье–Маффуччи), дисхондроплазии (множественных костно-хрящевых экзостозов, болезни Оллье), хондром, хондробластом, хондромиксоидной фибромы, морфологически подобны классической, но выделяются в отдельную группу ввиду разнообразия клинических состояний, приводящих к их возникновению [7, 8].

Обычные или классические первичные внутрикостные хондросаркомы составляют более 90% этой опухоли, однако накопление знаний позволило морфологам выделить несколько ее вариантов, отличающихся в том числе и потенциальной активностью злокачественного роста. Lichtenstein (1955) привел описание «периостальной» хондросаркомы, исходившей из надкостницы, однако в Международную гистологическую классификацию опухолей костей она вошла под названием «юкстакортикальной» (Jaffe, 1958). Из-за возможности наличия в опухоли гистологически схожих с мезенхимальным хрящем недифференцированных участков, напоминающих гемангиоперицитому и поля крупных клеток типа саркомы Юинга, Lichtenstein и Bernstein (1959) выделили «мезенхимальную» хондросаркому. Наиболее злокачественную форму, в которой наряду с дифференцированными участками встречаются резко анаплазированные, напоминающие рабдомиосаркому, остеосаркому и гемангиоперицитому ткани, McFarland и Reed (1970) определили как «дедифференцированную». В свою очередь, Uni и соавт. (1976) хрящевую опухоль низкой степени злокачественности назвали «светлоклеточной хондросаркомой» ввиду наличия в ней хрящевых клеток со светлой широкой цитоплазмой [9].

С учетом клинико-морфологических данных, хондросаркомы принято делить на три группы — с высокой, средней и низкой степенью злокачественности [10], что желательно определить до операции по клинико-рентгенологическим и морфологическим (биопсийным) данным — это необходимо для решения вопроса о характере, объеме и методике оперативного вмешательства. При правильно выполненных (блоком) резекциях костей у больных с хондросаркомами высокой степени зрелости (низкой злокачественности), как правило, не отмечается местных рецидивов и отдаленных метастазов, тогда как при средней степени зрелости развиваются и местные рецидивы (около 15%), и метастазы в легкие. При хондросаркомах низкой степени зрелости с резко выраженной анаплазией прогноз считается крайне неблагоприятным как для жизни, так и для проведения сохранной операции: после обширных резекций таза у таких больных быстро возникает рецидив [9, 11].

А.А. Запорожец (1959) отметил одну из бесспорных особенностей хондросарком — способность ткани к имплантации. По его мнению, если при операции нарушена целостность опухоли, то вероятность возникновения рецидива хондросарком средней и низкой степени зрелости считается практически стопроцентной. Повреждение хондросаркомы высокой степени зрелости не всегда ведет к ее рецидиву — обязательны смена инструментов и более широкое иссечение тканей в месте нарушения

целостности опухоли. При имплантационном рецидиве в зоне вмешательства рецидивный узел обычно имеет четкие границы, однако это впечатление обманчиво, так как, кроме основного узла, в его окружности в рубцах располагаются рассеянные мелкие клинически не определяемые вторичные узлы. Попытка иссечь только определяемый рецидивный узел приводит к повторному нарушению абластики и радикализма, поэтому в таких случаях повторную операцию, если это возможно, рекомендуют выполнять более широко, иссекая не только рецидивный узел, но и всю зону рубцов после первой операции. Рецидивные узлы хондросарком могут быть более злокачественными и инвазивными, чем первичная опухоль [9, 12]. И хотя хондросаркомы метастазируют значительно реже остеогенных сарком, это происходит у большего числа больных, имеющих большие или громадные размеры первичного опухолевого узла, что связано с биологическими особенностями опухоли. При этом в значительном проценте случаев метастазы развиваются в легких.

Хондросаркома преимущественно (до 40% случаев) локализуется в длинных костях, главным образом нижних конечностей, при этом может развиваться в любом ее отделе как центрально, так и эксцентрично. В плоских костях обычно располагается эксцентрически, при этом 25–45% приходится на кости таза, до 20% — на поражения ребер и лопаток. К редким (не более 5% всех случаев хондросарком) относятся поражения позвоночника и черепно-лицевого скелета — верхнечелюстной пазухи, нижней челюсти, полости носа, носоглотки, орбиты и основания черепа [9, 13–15].

Среди первичных злокачественных опухолей позвоночника хондросаркома составляет от 7 до 12% [13, 3, 2], работы по ее лечению единичны, а прогноз напрямую связывают с дифференцировкой опухоли и наличием метастазов [11, 16–18]. Их онкологической особенностью является резистентность к химио- и лучевой терапии [13, 19]. А учитывая имеющуюся прямую зависимость эффективности лечения от радикальности и абластичности операции, частая неосуществимость этих принципов при локализации в позвоночнике определяет плохой прогноз, прогнозируемые рецидивы после повторных операций [2–4, 9, 19].

Можно предположить, что у наблюдаемого нами пациента ранние первый (через 2 мес) и второй (через 1,5 мес) местные рецидивы опухоли могли быть связаны с нерадикальностью вмешательств. Проведенная нами операция при втором рецидиве опухоли уже включала удаление узлов в мягких тканях спины и не связанного с ними пораженного тела позвонка Th<sub>II</sub>. То, что третий рецидив выявлен через 1 год 3 мес после операции, и его характер (наличие нескольких узлов) говорят в пользу имплантационных метастазов. Вопрос о целесообразности повторного (четвертого по счету) хирургического вмешательства у пациента остается, на наш взгляд, хотя и дискутабельным, но достаточно обоснованным — хотя бы с точки зрения улучшения качества жизни пациента в период дожития. Следует отметить и то, что использо-

ванные нами показатели рекомендованных для онкологической вертебрологии оценочных шкал (SINS, ВАШ), как и клинические признаки миелопатии на фоне сдавле-

ния спинного мозга, свидетельствовали о наличии показаний к оперативному лечению, несмотря на то, что неблагоприятный исход заболевания наиболее вероятен.

# Список литературы

- 1. Бабоша В.А., Гребенюк Ю.А., Солоницын Е.А. Хирургическое лечение патологических переломов длинных костей конечностей на фоне метастазов гипернефроидного рака почки // Травма. 2011. Т. 12, № 1. С. 104–109. Babosha V.A., Grebenyuk Yu.A., Solonitsyn E.A. Khirurgicheskoe lechenie patologicheskikh perelomov dlinnykh kostei konechnostei na fone metastazov gipernefroidnogo raka pochki // Travma. 2011. Т. 12, № 1. S. 104–109.
- Hirsh L.F., Thanki A., Spector H.B. Primary spinal chondrosarcoma with eighteen-year follow-up: case report and literature review // Neurosurgery. 1984. Vol. 14. P. 747–749.
- 3. *Mycaes Э.Р.* Первичные опухоли позвоночника: обзор литературы // Практическая онкология. 2010. Т. 11, № 1 (41). С. 19–24. *Musaev E.R.* Pervichnye opukholi pozvonochnika: obzor literatury // Prakticheskaya onkologiya. 2010. Т. 11, N 1 (41). S. 19–24.
- Мусаев Э.Р., Алиев М.Д., Щипахин С.А. Первичные опухоли позвоночника // Саркомы костей, мягких тканей и опухоли кожи. 2012. № 3. С. 3–10. Musaev E.R., Aliev M.D., Shchipakhin S.A. Pervichnye opukholi pozvonochnika // Sarkomy kostei, myagkikh tkanei i opukholi kozhi. 2012. N 3. S. 3–10.
- 5. Мушкин А.Ю., Мальченко О.В. Онкологическая вертебрология: избранные вопросы. Новосибирск, 2012. 152 с. Mushkin A.Yu., Mal'chenko O.V. Onkologicheskaya vertebrologiya: izbrannye voprosy. Novosibirsk, 2012. 152 s.
- Tomita K., Toribatake Y., Kawahara N. et al. Total en bloc spondylectomy and circumspinal decompression for solitary spinal metastasis // Paraplegia. 1994. Vol. 32. P. 36–46.
- Shives T.C., McLeod R.A., Unni K.K., Schray M.F. Chondrosarcoma of the spine // J. Bone Joint. Surg. Am. 1989. Vol. 71. P. 1158–1165.
- The Skeletal lesions Interobserver Correlation among Expert Diagnosicians (SLICED) Study Group. Reliability of histopathologic and radiologic grading of cartilaginous neoplasms in long bones // J. Bone Joint Surg. Am. 2007. Vol. 89. P. 2113–2123.
- 9. Зацепин С.Т. Костная патология взрослых: руководство для врачей. М.: Медицина, 2001. 640 c. Zatsepin S.T. Kostnaya patologiya vzroslykh: rukovodstvo dlya vrachei. Moscow: Meditsina, 2001. 640 s.
- 10. *Берченко Г.Н., Шугаева О.Б.* Трудности диагностики хондросарком кости различной степени злокачественно-

- сти // Саркомы костей, мягких тканей и опухоли кожи. 2011. № 4. С. 21–29. *Berchenko G.N., Shugaeva O.B.* Trudnosti diagnostiki khondrosarkom kosti razlichnoi stepeni zlokachestvennosti // Sarkomy kostei, myagkikh tkanei i opukholi kozhi. 2011. N 4. S. 21–29.
- 11. Bergh P., Guntenberg B., Meis Kindblom J.M., Kindblom L.G. Prognostic factors and outcome of pelvis, sacral, and spinal chondrosarcomas: a center-based study of 69 cases // Cancer. 2001. Vol. 91. P. 1201–1212.
- 12. Полищук Н.Е., Слынько Е.И., Пастушин А.И., Муравский А.В. Хирургическое лечение опухолей позвонков // Нейрохирургия. 1999. № 3. С. 13–19. Polishchuk N.E., Slyn'ko E.I., Pastushin A.I., Muravskii A.V. Khirurgicheskoe lechenie opukholei pozvonkov // Neirokhirurgiya. 1999. № 3. S. 13–19.
- 13. Алиев М.Д. Злокачественные опухоли костей // Саркомы костей, мягких тканей и опухоли кожи. 2010. № 2. С. 3–8. Aliev M.D. Zlokachestvennye opukholi kostei // Sarkomy kostei, myagkikh tkanei i opukholi kozhi. 2010. N 2. S. 3–8.
- 14. Соловьев Ю.Н., Булычева И.В. Первичные злокачественные опухоли костей, современное состояние вопроса // Саркомы костей, мягких тканей и опухоли кожи. 2012. № 2. С. 57–64. Solov'ev Yu.N., Bulycheva I.V. Pervichnye zlokachestvennye opukholi kostei, sovremennoe sostoyanie voprosa // Sarkomy kostei, myagkikh tkanei i opukholi kozhi. 2012. N 2. S. 57–64.
- 15. Camins M.B., Duncan A.W., Smith J., Marcove R.C. Chondrosarcoma of the spine // Spine. 1978. Vol. 3. P. 202–209.
- Boriani S., Biagini R., De Lure F. et al. En block resections of bone tumors of the thoracolumbar spine. A preliminary report on 29 patients // Spine. 1996. Vol. 21. P. 1927–1931.
- 17. Heary R.F., Vaccaro A.R., Benevenia J., Cotler J.M. «En block» vertebrectomy in mobile lumbar spine // Surg. Neurol. 1998. Vol. 50, N 6. P. 548–556.
- Stener B. Technique of complete spondylectomy in the thoracic and lumbar spine // Tumors of the Spine: Diagnosis and Clinical Man-agement / eds.: N. Sundaresan et al. Philadelphia, 1990. P. 432–437.
- 19. Шевцов В.И., Худяев А.Т., Балаев И.И. Первые результаты лечения больных с опухолями позвоночника в грудном и поясничном отделах // Гений ортопедии. 2003. № 4. С. 5–10. Shevtsov V.I., Khudyaev A.T., Balaev I.I. Pervye rezul'taty lecheniya bol'nykh s opukholyami pozvonochnika v grudnom i poyasnichnom otdelakh // Genii ortopedii. 2003. N 4. S. 5–10.

Поступила в редакцию 10.04.2017 г.

# Сведения об авторах:

*Куклин Дмитрий Владимирович* — кандидат медицинских наук, старший научный сотрудник Санкт-Петербургского научно-исследовательского института фтизиопульмонологии; 194064, Санкт-Петербург, Политехническая ул., д. 32; e-mail: kudim76@inbox.ru;

*Беляков Михаил Викторович* — кандидат медицинских наук, старший научный сотрудник Санкт-Петербургского научно-исследовательского института фтизиопульмонологии; 194064, Санкт-Петербург, Политехническая ул., д. 32; e-mail: dr\_bmv@mail.ru;

Дорофеев Леонид Александрович — кандидат медицинских наук, заведующий отделением хирургии позвоночника Санкт-Петербургского научно-исследовательского института фтизиопульмонологии; 194064, Санкт-Петербург, Политехническая ул., д. 32;

Роднова Ирина Геннадьевна — кандидат медицинских наук, научный сотрудник Санкт-Петербургского научно-исследовательского института фтизиопульмонологии; 194064, Санкт-Петербург, Политехническая ул., д. 32; e-mail: igrod1307@mail.ru;

*Мушкин Александр Юрьевич* — доктор медицинских наук, профессор, главный научный сотрудник Санкт-Петербургского научно-исследовательского института фтизиопульмонологии; 194064, Санкт-Петербург, Политехническая ул., д. 32; e-mail: aymushkin@mail.ru.

