

# Лимфангиома у плода: клінічний випадок

А.А. Суханова<sup>1</sup>, Е.А. Карлова<sup>1</sup>, Н.В. Банковська<sup>2</sup>, Е.В. Кузьмінська<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Національний університет здравоохранения Украины имени П.Л. Шупика

(Національна медичинська академія післядипломного освіти імені П.Л. Шупика), г. Київ

<sup>2</sup>ГУ «Національний інститут серцево-судинної хірургії імені Н.М. Амосова НАМН України», г. Київ

<sup>3</sup>Національний медичинський університет імені А.А. Богомольца, г. Київ

Лимфангиома – доброкачественная опухоль лимфатической системы врожденного характера, которая в большинстве случаев поражает лимфатические узлы в различных анатомических зонах. Постнатально наиболее часто манифестация лимфангиомы встречается в течение первого года жизни ребенка. На современном этапе лимфангиома может быть диагностирована у плода внутриутробно. Эта диагностика основана на неинвазивных методах исследования, таких, как УЗИ, компьютерная томография.

Цель исследования: анализ клинического случая манифестации лимфангиомы у плода во время беременности пациентки.

На 28, 32, 34-й неделях беременности проводили ультразвуковое исследование плода, в результате чего в правой подмышечной области было выявлено гипоехогенное образование, которое увеличивалось в размерах в динамике при обследовании (с 34×28 мм, 38×34 мм, до 49×37 мм). Образование имело четкие ровные контуры, гиперэхогенную капсулу с мелкодисперсной взвесью. При цветовом доплеровском картировании был отмечен аваскулярный характер образования.

После родоразрешения пациентки в сроке 37–38 нед путем планового кесарева сечения, у новорожденного визуализировалось ассиметричное выпячивание мягко-эластичной консистенции по средне-ключичной и передней подмышечной области.

Описанный клинический случай лимфангиомы является иллюстрацией динамического пренатального и постнатального наблюдения и его ультразвуковой интерпретации.

**Ключевые слова:** опухоль, лимфангиома, беременность, ультразвуковая диагностика.

## Clinical case of fetal lymphangioma

A.A. Sukhanova, O.O. Karlova, N.V. Bankovska, O.V. Kuzminska

Lymphangioma is a benign lymphatic system tumor, often congenital, mainly affecting lymph nodes in various anatomic localizations. Postnatally mostly common lymphangioma manifestation occurs during the first year of life. Today it can be readily diagnosed prenatally. Diagnosis is based on non-invasive visualization, such as sonography and computed tomography.

The objective: is to present clinical case of manifest fetal lymphangioma diagnosed during pregnancy.

Fetal ultrasound (US) was performed at 28, 32, 34 weeks of gestation. As a result fetus was diagnosed with hypoechogenic mass in right axillary region, growing in dynamics gradually from 34×28 mm, 38×34 mm to 49×37 mm. Mass had clear even contours, hyperechogenic capsule with fine dispersed suspension content. Color doppler imaging showed avascular mass character.

After delivery at 37–38 weeks of gestation (planned Cesarean section) at newborn examination we visualized asymmetric soft elastic consistency protrusion along right midclavicular and anterior axillary region.

Described clinical case of fetal lymphangioma is a good illustration of dynamic prenatal and postnatal dynamic observation and its US interpretation.

**Keywords:** tumor, lymphangioma, pregnancy, ultrasound diagnostics.

## Лимфангиома у плода: клінічний випадок

А.А. Суханова, О.О. Карлова, Н.В. Банковська, О.В. Кузьмінська

Лимфангиома – доброкачественная опухоль лимфатической системы врожденного характера, яка в більшості випадків вражає лимфатичні вузли різних анатомічних ділянок. Постнатально найчастіше маніфестація лимфангиоми зустрічається протягом першого року життя дитини. На сучасному етапі лимфангиома може вже діагностуватися у плода внутрішньоутробно. Ця діагностика заснована на неінвазивних методах дослідження, таких, як ультразвукове дослідження та комп'ютерна томографія.

Мета дослідження: аналіз клінічного випадку маніфестації лимфангиоми у плода під час вагітності пацієнтки.

На 28, 32, 34-у тижнях вагітності проводили ультразвукове дослідження плода, в результаті якого у правій паховій ділянці було виявлено гіпоехогенне утворення, яке в динаміці обстежувані збільшувалося в розмірах (з 34×28 мм, 38×34 мм, до 49×37 мм). Утворення мало чіткі рівні контури, гіперехогенну капсулу з дрібнодисперсною суспензією. Під час проведення кольорового доплерівського картування був відзначений аваскулярний характер утворення.

Після пологів пацієнтки у терміні 37–38 тиж шляхом планового кесарева розтину при огляді новонародженого у нього візуалізувалося асиметричне випинання м'яко-еластичної консистенції в середньо-ключичній і передній паховій області.

Описаний клінічний випадок лимфангиоми є ілюстрацією динамічного пренатального і постнатального спостереження і його ультразвукової інтерпретації.

**Ключові слова:** пухлина, лимфангиома, вагітність, ультразвукова діагностика.

Лимфангиома – доброкачественная опухоль врожденного характера, состоящая из множества тонкостенных кист различных размеров, являющихся формой атипично развитых лимфатических сосудов. Лимфангиома отнесена к разряду доброкачественных опухолей лимфатической системы. Они составляют приблизительно 10–12% всех доброкачественных новообразований у детей. Морфологическим субстратом образования является лимфатический сосуд, состоящий из эндотелиальных клеток и соединительной основы, тело опухоли макроскопически представляет собой тонкостенную полость различных размеров от 1 мм до нескольких сантиметров.

Внутриутробно лимфангиома у плода возникает в конце I и/или начале II триместра беременности. В 62% случаев она ассоциирована с хромосомными аномалиями плода и новорожденного, чаще с синдромом Тернера [7]. Постнатально наиболее часто манифестация лимфангиомы встречается в течение первого года жизни ребенка. Возможно появление образований к 3-му году жизни.

В исследованиях последних лет этиологическим фактором развития опухоли названы травматический фактор или аномалия развития лимфатической системы [1, 6, 12]. V. Weeda и соавторы показали, что у пациентов с мальпро-

тацией и заворотом кишечника кистозная лимфангиома брыжейки может рассматриваться как приобретенная патология [14].

В экспериментальных исследованиях R. Ji (2010) при моделировании развития лимфангиом у мышей путем введения неполного адьюванта Фрейнда (IFA) внутривнутрибрюшинно было выявлено возможное влияние сосудистого эндотелиального фактора роста (VEGF)-A/-C/-D и его рецепторов VEGF receptors-2/-3 на сигнальный механизм гена Prox-1, являющегося критическим регулятором клеточной активности и морфогенеза различных тканей, в том числе лимфатических сосудов [5].

Следует учесть, что поражение лимфатических узлов может быть в различных анатомических областях. По данным литературы, наиболее часто поражаются лимфатические узлы шеи – до 75%, 20% – в подмышечной области, 2% – в брюшной полости и ретроперитонеально [4], 2% – поражаются конечности и кости и 1% – средостение [2, 3]. Наиболее часто опухоли, располагающиеся ниже диафрагмы, имеют левостороннюю локализацию (63%).

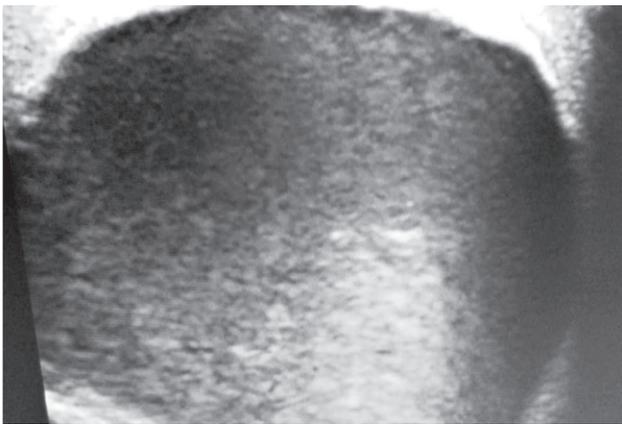
Пролиферация лимфангиом происходит довольно медленно, однако описаны случаи спонтанного роста образований за короткое время.

В практической медицинской деятельности различают поверхностные и глубокие лимфангиомы. Учитывается также гистопатологический тип опухоли. В зависимости от гистологического строения классифицируют простую, кавернозную и кистозную лимфангиому.

Простая лимфангиома морфологически представлена разрастанием лимфатических сосудов в четко ограниченных участках кожи, а также в подкожной клетчатке.

Кавернозная лимфангиома – наиболее часто встречаемый гистологический вариант у детей, состоящий из неравномерно заполненных лимфой полостей. Гистологически образование представлено неравномерно заполненными лимфой полостями с соединительнотканым губчатым основанием и эластическим каркасом, гладкомышечными волокнами, и мелкими лимфатическими сосудами.

Кистозная лимфангиома состоит из одной или нескольких кист различной величины, как правило от 0,3 см до огромных размеров, иногда даже размером с голову ребенка. Они могут как сообщаться, так и не сообщаться между собой. Стенки такой лимфангиомы плотные, содержат плотную соединительную ткань.



**Рис. 1.** Беременность 32 нед. Округлое образование в подмышечной области у плода справа. Содержимое образования гипоэхогенное с мелкодисперсной взвесью. При цветовом доплеровском картировании отмечен аваскулярный характер образования

Кистозная лимфангиома, локализуемая в брюшной полости или в забрюшинном пространстве, имеет следующие характеристики: стенка кисты состоит из монослоя эндотелиальных клеток, небольшого лимфатического пространства, большого количества лимфатической ткани, гладкой мускулатуры и пенистых клеток, представляющих собой заполненные жировыми включениями образования разных размеров [8]. Глубокие лимфангиомы представляют собой диффузные образования, состоящие из расширенных кистозных полостей.

В зависимости от размеров опухоли выделяют макрокистозную (размер более 5 см) и микрокистозную лимфангиому (размер менее 5 см).

На основании данной классификации принимается решение о выборе метода лечения. Следует отметить, что в случае антенатальной диагностики лимфангиомы больших размеров в области шеи показано оперативное родоразрешение. Диагностика основана на неинвазивных методах исследования, таких, как УЗИ, рентгенография, магнитно-резонансная и компьютерная томография.

**Цель исследования:** анализ клинического случая манифестации лимфангиомы у плода во время беременности.

*Клинический случай пренатального и постнатального наблюдения за лимфангиомой плода и новорожденного.*

Пациентка В., 31 год, роды вторые, беременность 3-я (первые роды в 2011 г., в 2013 г. был выполнен медицинский аборт). Первый ребенок имеет нарушение умственного развития в форме умеренной умственной отсталости.

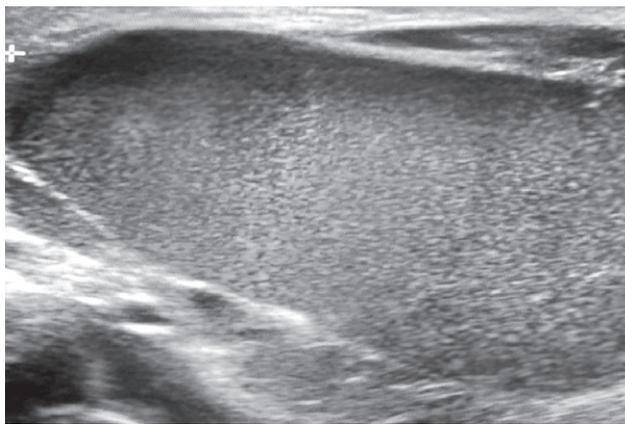
В особенностях течения настоящей беременности следует отметить острое респираторное заболевание, перенесенное пациенткой в 28 нед беременности. По данным лабораторных исследований на протяжении беременности результаты общеклинических анализов находились в пределах нормы.

Данные биохимического скрининга I триместра: PAPP 1,00 МоМ fβ –hCG МоМ. Вычисленный риск трисомии 13/18 <1:10000, что является низким значением риска.

Данные инструментального исследования: УЗИ I и II триместров выполнены в регламентируемые сроки, результаты соответствовали гестационному периоду.

УЗИ в 32 нед. Беременность 32 нед. Образование в подмышечной области у плода справа.

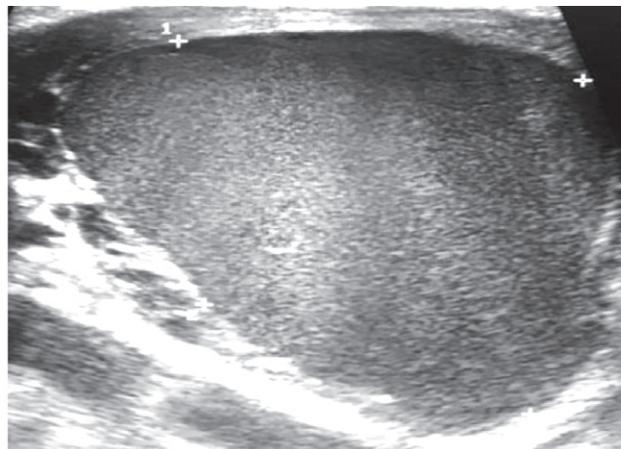
При выполнении УЗИ у плода в правой подмышечной области визуализировалось гипоэхогенное образование размером 34×28 мм, с четким ровным контуром, гиперэхогенной капсулой. Содержимое образования было гипоэхогенное с



**Рис. 2.** Беременность 34 нед. Округлое образование в подмышечной области у плода справа. Содержимое образования гипоэхогенное с мелкодисперсной взвесью. При цветовом доплеровском картировании отмечен аваскулярный характер образования



**Рис. 3. Status localis у новорожденного с лимфангиомой**



**Рис. 4. УЗИ лимфангиомы у новорожденного, 1-е сутки**

мелкодисперсной взвесью. При цветовом доплеровском картировании отмечен аваскулярный характер образования (рис. 1).

Рекомендовано повторное исследование через 2 нед.

УЗИ в 34 нед. В правой подмышечной и срединно-ключичной линии плода визуализировалось округлое гипоэхогенное образование 38×34 мм (при сравнении с результатами УЗИ в 32 нед отмечена тенденция к росту). По задней поверхности образования обнаружены множественные эхонегативные полости, прилежащие друг к другу. Визуализировался гиперэхогенный контур структуры. При ЦДК отмечен аваскулярный характер образования (рис. 2).

Беременность 34 нед. Образование в подмышечной области у плода справа (микрокистозная кавернозная лимфангиома подмышечной области). Рекомендовано: УЗИ исследование в динамике с интервалом в 2 нед.

При динамическом наблюдении пациентки отмечалось увеличение размеров образования до 49×37 мм в динамике.

Родоразрешение – в сроке 37–38 нед беременности путем планового кесарева сечения. Родился мальчик

массой тела 3200 г, ростом 49 см, с оценкой по Апгар 8 баллов.

При осмотре у новорожденного по средне-ключичной и передней подмышечной области при пальпации визуализировалось ассиметричное выпячивание мягко-эластичной консистенции (рис. 3).

Выполнено УЗИ. По средне-ключичной и передней подмышечной области у ребенка визуализировалось эхонегативное образование с мелкодисперсной взвесью размером 44×38 мм. По задней поверхности образования определялись множественные эхонегативные полости, прилежащие друг к другу. Визуализировался гиперэхогенный контур структуры. При ЦДК отмечен аваскулярный тип структуры (рис. 4).

Пациентка и ребенок были выписаны в удовлетворительном состоянии под наблюдение детского хирурга.

### ВЫВОДЫ

Описанный клинический случай лимфангиомы является иллюстрацией динамического пренатального и постнатального наблюдения и его ультразвуковой интерпретации.

### Сведения об авторах

**Суханова Аурика Альбертовна** – Кафедра акушерства, гинекологии и репродуктологии Национального университета здравоохранения Украины имени П.Л. Шупика, 04210, г. Киев, пр. Героев Сталинграда, 16

ORCID: 0000-0001-8588-7525

**Карлова Елена Александровна** – Кафедра акушерства, гинекологии и репродуктологии Национального университета здравоохранения Украины имени П.Л. Шупика, 04210, г. Киев, пр. Героев Сталинграда, 16

ORCID iD <https://orcid.org/0000-0002-5506-4154>

**Банковская Наталья Владимировна** – ГУ «Национальный институт сердечно-сосудистой хирургии имени Н.М. Амосова НАМН Украины», 03038, г. Киев, ул. Амосова, 6

ORCID iD <https://orcid.org/0000-0002-1953-6943>

**Кузьминская Елена Владимировна** – Кафедра гигиены и экологии № 4 Национального медицинского университета имени А.А. Богомольца, 03057, г. Киев, пр. Победы, 34

ORCID ID:0000-0002-8259-1611

### Information about the author

**Sukhanova Aurika Albertivna** – Shupyk National Healthcare University of Ukraine, 04210, Kyiv, 16 Heroes of Stalingrad Ave. ORCID: 0000-0001-8588-7525

**Karlova Olena Oleksandrivna** – Shupyk National Healthcare University of Ukraine, 04210, Kyiv, 16 Heroes of Stalingrad Ave. ORCID iD <https://orcid.org/0000-0002-5506-4154>

**Bankovska Nataliia Volodymyrivna** – Amosov National Institute of Cardiovascular Surgery of NAMS of Ukraine, 03038, Kyiv, 6 Amosova Str.

ORCID iD <https://orcid.org/0000-0002-1953-6943>

**Kuzminska Olena Volodymyrivna** – A.A. Bogomolets National Medical University, 03057, Kyiv, 34 Peremohy Ave. ORCID ID:0000-0002-8259-1611

**Відомості про авторів**

**Суханова Ауріка Альбертівна** – Кафедра акушерства, гінекології та репродуктології Національного університету охорони здоров'я України імені П.Л. Шупіка, 04210, м. Київ, пр. Героїв Сталінграду, 16

ORCID: 0000-0001-8588-7525

**Карлова Олена Олександрівна** – Кафедра акушерства, гінекології та репродуктології Національного університету охорони здоров'я України імені П.Л. Шупіка, 04210, м. Київ, пр. Героїв Сталінграду, 16

ORCID iD <https://orcid.org/0000-0002-5506-4154>

**Банковська Наталія Володимирівна** – ДУ «Національний інститут серцево-судинної хірургії імені М.М. Амосова НАМН України», 03038, м. Київ, вул. Амосова, 6

ORCID iD <https://orcid.org/0000-0002-1953-6943>

**Кузьмінська Олена Володимирівна** – Кафедра гігієни та екології № 4 Національного медичного університету імені О.О. Богомольця, 03057, м. Київ, пр. Перемоги, 34

ORCID ID:0000-0002-8259-1611

**СПИСОК ЛІТЕРАТУРИ**

1. Journal of Gastrointestinal Surgery. – 2006. – Vol. 10. – P. 746–751.
2. Cystic lymphangioma of the jejunal mesentery in an adult: a case report / C.W. Chen [et al.] // World Journal of Gastroenterology. – 2005. – Vol. 11. – P. 5084–5086.
3. Chung J.C. Cystic lymphangioma of the jejunal mesentery presenting with acute abdomen in an adult / J.C. Chung, O.P. Song // Canadian Journal of Surgery. – 2009. – Vol. 52. – P. 286–288.
4. Gleason C.A. Avery's diseases of the newborn / C.A. Gleason, S.U. Devaskar. – 9th ed., 2012 Elsevier Inc. Saunders – 1498 p.
5. Multiple expressions of lymphatic markers and morphological evolution of newly formed lymphatics in lymphangioma and lymph node lymphangiogenesis/ R. Ji [et al.] // Microvascular Research. – 2010. – Vol. 80, Is. 2. – P. 195–201.
6. Losanoff, J. E. Mesenteric cystic lymphangioma: unusual cause of intra-abdominal catastrophe in an adult / J.E. Losanoff, K.T. Kjossev // International Journal of Clinical Practice. – 2005. – Vol. 59. – P. 986–987.
7. Giant fetal lymphangioma at chest wall and prognosis: Case report and literature review / D. Lu [et al.] // Taiwanese Journal of Obstetrics and Gynecology. – 2015. – Vol. 54. – P. 62–65.
8. Martin, R.J. Fanaroff and Martin's Neonatal-Perinatal Medicine. Diseases of the Fetus and Infant / R.J. Martin, A.A. Fanaroff, M.C. Walsh. – 9th ed. – Elsevier Inc. Mosby. – 2011. – P. 1840.
9. Cystic lymphangioma of the lesser omentum in an adult / E. Martín-Pérez [et al.] // The American Journal of Surgery. – 2010. – Vol. 199, Is.2. – P. 20–22.
10. Tanga, S. Small Bowel Lymphangioma / S. Tanga, F. Bhaijee // Video Journal and Encyclopedia of GI Endoscopy. – 2014. – Vol. 1. – P. 663–665.
11. Giant cystic lymphangioma of the small bowel mesentery: report of a case / H. Tsukada [et al.] // Surgery Today. – 2002. – Vol. 32. – P. 734–737.
12. Wani, I. Mesenteric lymphangioma in adult: a case series with a review of the literature / I. Wani // Digestive Diseases and Sciences. – 2009. – Vol. 54. – P. 2758–2762.
13. A case of mesenteric cystic lymphangioma in an adult which caused duodenal stenosis after resection / A. Watanabe [et al.] // International Journal of Surgery Case Reports. – 2013. – Vol. 4, Is.2. – P. 212–215.
14. Weeda V.B. Mesenteric cystic lymphangioma: a congenital and an acquired anomaly? Two cases and a review of the literature / V.B. Weeda, K.A.C. Booi, D.C. Aronson // Journal of Pediatric Surgery. – 2008. – Vol. 43, Is. 6. – P. 1206–1208.
15. A rare case report of cystic lymphangioma of greater omentum in a child on MDCT / A. Yadav [et al.] // Current Medicine Research and Practice. – 2014. – Vol. 4, Is. 2. – P. 83–86.

Стаття надійшла до редакції 30.12.2020