

УДК 618 (072)

О.О. Карлова<sup>1</sup>, О.В. Кузьмінська<sup>2</sup>

## Пренатальне спостереження за розвитком доброякісної пухлини у плода: клінічний випадок

<sup>1</sup>Національний університет охорони здоров'я України імені П.Л. Шупика, м. Київ<sup>2</sup>Національний медичний університет імені О.О. Богомольця, м. Київ, Україна

Ukrainian Journal Health of Woman. 2022. 5(162): 39-43; doi 10.15574/HW.2022.162.39

**For citation:** Karlova OO, Kuzminska OV. (2022). Prenatal observation of the development of a benign tumor in a fetus: a clinical case. Ukrainian Journal Health of Woman. 5(162): 39-43; doi 10.15574/HW.2022.162.39.

Висвітлено результати спостереження за перебігом і розвитком доброякісної пухлини в плода — лімфангіоми, яка належить до рідкісної патології (становить до 10% від доброякісних новоутворень у дітей). Це новоутворення не поєднується з хромосомними аномаліями та зазвичай характеризується сприятливим внутрішньоутробним і постнатальним перебігом, який залежить від розміру та локалізації утворення.

Описано доброякісну пухлину лімфатичної системи вродженого характеру в ділянці шиї, наведено результати спостереження за перебігом і розвитком пухлини в плода. Результати дослідження базуються на загальноклінічних даних і даних ультразвукової діагностики. У разі антенатального діагностування лімфангіоми великих розмірів у ділянці шиї рекомендовано оперативне розродження.

**Мета** — навести клінічний випадок пренатальної діагностики лімфангіоми в плода, описати особливості спостереження та катамнез клінічного випадку.

**Матеріали та методи.** Цей клінічний випадок наведено в пацієнтки В., віком 31 рік, яка мала другі пологи, третю вагітність. Використано дані загальноклінічних досліджень, ультразвукового обстеження (ультразвуковий сканер «Аloka 3500»).

**Результати.** За результатами загальноклінічних досліджень, аналізи пацієнтки протягом вагітності перебували в межах норми. Відповідно до даних біохімічного скринінгу першого триместру вагітну віднесено до групи низького ризику. Під час ультразвукового обстеження плода з інтервалом у два тижні статистично значущого збільшення розмірів лімфангіоми не виявлено. Рання діагностика лімфангіоми плода дає змогу контролювати перебіг вагітності, пологів, оцінювати можливі ускладнення.

**Висновки.** Описаний клінічний випадок лімфангіоми є ілюстрацією динамічного пренатального та постнатального спостереження та його ультразвукової інтерпретації. Рання діагностика доброякісних пухлин лімфатичної системи вродженого характеру дає змогу адекватно контролювати перебіг вагітності, пологів, оцінити плацентарну недостатність і передбачити ускладнення.

Дослідження виконано відповідно до принципів Гельсінської декларації. На проведення досліджень отримано інформовану згоду пацієнтки.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

**Ключові слова:** пухлина, лімфангіома, вагітність, ультразвукова діагностика, пренатальне спостереження.

### Prenatal observation of the development of a benign tumor in a fetus: a clinical case

O. O. Karlova<sup>1</sup>, O. V. Kuzminska<sup>2</sup><sup>1</sup>Shupyk National Healthcare University of Ukraine, Kyiv<sup>2</sup>Bogomolets National Medical University, Kyiv, Ukraine

The article presents the results of monitoring the course and development of a benign tumor in the fetus — lymphangioma, which is a rare pathology (up to 10% of benign neoplasms in children). These neoplasms are not caused by chromosomal abnormalities and, as a rule, are characterized by a favorable intrauterine and postnatal course, which depends on the size and location of the formation.

The article describes a benign tumor of the lymphatic system of a congenital nature in the neck, presents the results of monitoring the course and development of the tumor in the fetus. The results of the study are based on general clinical data and ultrasound data. With antenatal diagnosis of large lymphangioma in the neck, operative delivery is indicated.

**Purpose** — to present a clinical case of prenatal diagnosis of lymphangioma in the fetus, to describe the features of observation and clinical case history.

**Materials and methods.** This clinical case is presented in a patient V., 31 years old, who had a second delivery, third pregnancy. Data from general clinical studies, ultrasound examination (ultrasound scanner Aloka 3500) were used.

**Results.** According to the results of general clinical examinations, the patient's tests during pregnancy were within the normal range. According to the biochemical screening data of the first trimester, the pregnant woman is classified as a low-risk group. An ultrasound examination of the III trimester, at 32 weeks, revealed a mass in the axillary region of the fetus on the right (lymphangioma). Early diagnosis of fetal lymphangioma allows you to control the course of pregnancy, childbirth, and evaluate possible complications.

**Conclusions.** The described clinical case of lymphangioma is an illustration of dynamic prenatal and postnatal observation and its ultrasonic interpretation. Early diagnosis of benign tumors of the lymphatic system of a congenital nature allows you to adequately control the course of pregnancy, childbirth, assess placental insufficiency and anticipate complications.

The research was carried out in accordance with the principles of the Helsinki Declaration. The informed consent of the patient was obtained for conducting the studies.

No conflict of interests was declared by the authors.

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

Лімфангіома — доброякісна пухлина з ряду доброякісних пухлин лімфатичної системи вродженого характеру, яка складається з безлічі тонкостінних кіст різних розмірів, що є формою атипово розвинених лімфатич-

них судин. Лімфангіоми становлять приблизно 10–12% усіх доброякісних новоутворень у дітей. Морфологічним субстратом пухлини є лімфатична судина, що складається з ендотеліальних клітин і сполучної основи, тіло пухлини

макроскопічно є тонкостінною порожниною різних розмірів від 1 мм до декількох сантиметрів [10–12,13,16].

Внутрішньоутробна лімфангіома у плода виникає наприкінці першого та (або) початку другого триместру вагітності. У 62% випадків вона асоційована з хромосомними аномаліями плода та новонародженого, частіше із синдромом Тернера [5]. Постнатально найчастіше лімфангіома маніфестує протягом першого року життя дитини, але можлива поява утворень і до третього року життя.

У дослідженнях науковців етіологічним фактором розвитку пухлини названо і травматичний фактор або аномалію розвитку лімфатичної системи [5,9,12,13]. V. Weeda та співавтори показали, що в пацієнтів із мальотацією та заворотом кишечника кістозна лімфангіома брижі може розглядатися як набута патологія [15].

В експериментальному дослідженні R. Ji (2010) при моделюванні розвитку лімфангіом у мишей шляхом введення неповного ад'юванта Фрейнда (IFA) внутрішньочеревно виявлено можливий вплив судинного ендотеліального фактора росту (VEGF)-A/-C/-D та його рецепторів VEGF receptors-2 /-3 на сигнальний механізм гена Prox-1, що є критичним регулятором клітинної активності та морфогенезу різних тканин, у тому числі лімфатичних судин [4].

Слід враховувати, що ураження лімфатичних вузлів може бути в різних анатомічних ділянках. Так, за науковими даними, найчастіше (до 75%) уражуються лімфатичні вузли шиї, ураження лімфовузлів у пахвовій області спостерігаються у 20% випадках, у черевній порожнині та ретроперитонеально — у 2% [3], кінцівки та кістки уражуються у 2% випадках, а середостіння — в 1% [1,2]. Крім того, у фаховій літературі акцентується увага, що найчастіше пухлини, розташовані нижче за діафрагму, мають лівобічну локалізацію (63%).

Проліферація лімфангіом відбувається досить повільно, проте описані випадки спонтанного зростання утворень і протягом короткого періоду.

У практичній медичній діяльності розрізняють поверхневі та глибокі лімфангіоми. Враховують також гістопатологічний тип пухлини. Залежно від гістологічної будови класифікують просту, кавернозну і кістозну лімфангіому.

Проста лімфангіома — це пухлина, морфологічно представлена обростанням лімфатичних судин у чітко обмежених ділянках шкіри, а також у підшкірній клітковині.

Кавернозна лімфангіома — це гістологічний варіант, що найчастіше зустрічається в дітей і складається з нерівномірно заповнених лімфою порожнин. Гістологічне утворення представлене лімфою, яка нерівномірно заповнює порожнини, представлені сполучнотканиною губчастою основою та еластичним каркасом, гладкими м'язовими волокнами та дрібними лімфатичними судинами.

Кістозна лімфангіома складається з однієї або кількох кіст різної величини (зазвичай від 0,3 см і до значних розмірів, що можуть сягати до розмірів із голову дитини). Ці кісти можуть бути як взаємопоєднані, так і окремо розташовані. Стінка такої лімфангіоми груба, морфологічно має щільну сполучну тканину.

Кістозна лімфангіома, яка локалізується в черевній порожнині або в заочеревинному просторі, має такі характеристики: стінка кісти складається з моношару ендотеліальних клітин, незначного лімфатичного простору, великої кількості лімфатичної тканини, гладкої мускулатури і пінистих клітин, що являють собою заповнені жировими включеннями утворення різних розмірів [7].

Глибокі лімфангіоми є дифузними утвореннями, що складаються з розширених кістозних порожнин.

Залежно від розмірів пухлини виділяють макрокістозну лімфангіому — понад 5 см, і мікрокістозну — менше 5 см. На основі цієї класифікації приймають рішення щодо вибору методу лікування. Слід зазначити, що в разі антенатального діагностування лімфангіоми великих розмірів у ділянці шиї рекомендують оперативне розродження. Діагностика базується на неінвазивних методах дослідження, таких як ультразвукове дослідження (УЗД), рентгенографія, магнітно-резонансна та комп'ютерна томографія.

Унікальність цього випадку полягає в тому, що такий вид пухлини в плода зустрічається рідко, тому можуть бути неправильно інтерпретовані результати обстеження вагітної, що не дає змоги правильно оцінити ризики і запланувати подальше оперативне втручання.

**Мета** роботи — навести клінічний випадок пренатальної діагностики лімфангіоми в плода; описати особливості спостереження та катамнез клінічного випадку.

### Клінічний випадок

Спостереження цього клінічного випадку відбулося у пацієнтки В., 31 рік, яка мала дру-

гі пологи, третю вагітність (у 2011 р. відбулися перші пологи, а у 2013 р. — медичне переривання вагітності). Перша дитина має порушення розумового розвитку у формі помірної розумової відсталості.

Анамнестичні особливості перебігу вагітності відзначалися гострим респіраторним захворюванням, перенесеним пацієнткою на 28-му тижні вагітності.

Дослідження виконано відповідно до принципів Гельсінської декларації. На проведення досліджень отримано інформовану згоду пацієнтки.

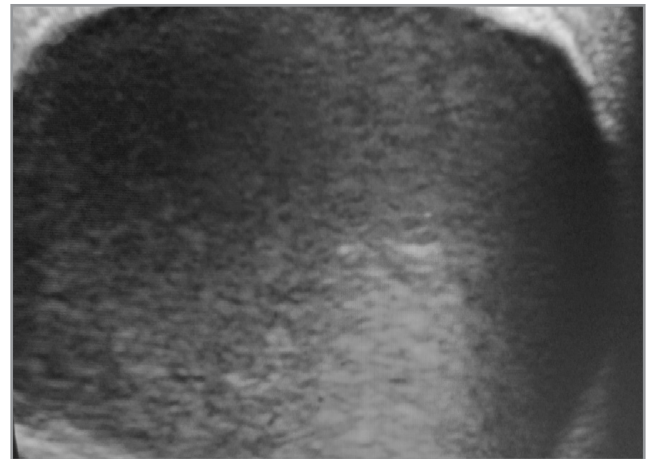
За результатами даних загальноклінічних досліджень, аналізи пацієнтки протягом її вагітності були в межах норми. Дані біохімічного скринінгу першого триместру вагітної такі: протеїн-А плазми (РАРР) — 1,00 МоМ (МоМ — англійська аббревіатура терміну «multiple of median», що в перекладі означає «кратне медіани»). Це — коефіцієнт, що показує ступінь відхилення значення того чи іншого показника пренатального скринінгу від середнього значення для терміну вагітності (медіани). Бета-хоріонічний гонадотропін людини ( $\beta$ -hCG) — 0,98 МоМ. Обчислено ризик Трисомії 13/18 <1: 10000, що відносить пацієнтку до низької групи ризику.

УЗД першого та другого триместрів виконано в регламентовані терміни, їх результати відповідали гестаційному періоду.

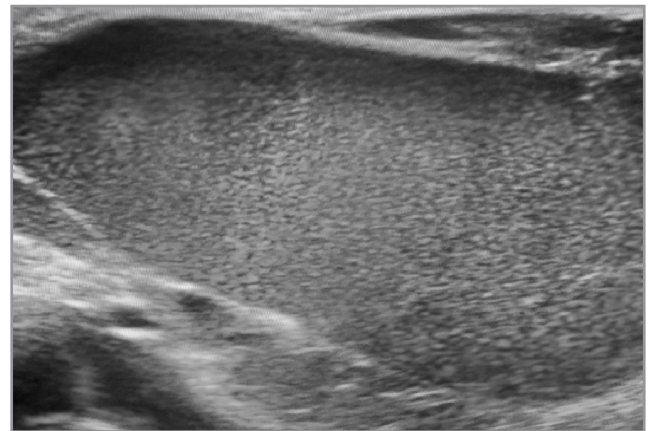
Проведено УЗД на 32-му тижні вагітності: вагітність 32 тижні; утворення в пахвовій області в плода справа.

При УЗД у плода в правій пахвовій ділянці візуалізовано гіпоехогенне утворення розміром 34×28 мм із чітким рівним контуром, гіперехогенною капсулою. Вміст утворення гіпоехогенний з дрібнодисперсною суспензією. При кольоровому доплерівському картуванні (КДК) відзначено аваскулярний характер кровоплину (рис. 1). Рекомендовано повторне дослідження за два тижні.

УЗД на 34-му тижні: у правій пахвовій та середньоключичній лінії плода візуалізовано округле гіпоехогенне утворення розміром 38×34 мм (при порівнянні з результатами УЗД на 32-му тижні відзначено тенденцію до збільшення лінійних розмірів). По задній поверхні утворення виявлено множинні ехонегативні порожнини, розташовані периферійно. Візуалізовано гіперехогенний контур структури. При КДК відзначено аваскулярний харак-



**Рис. 1.** Вагітність 32 тижні. Округле утворення у пахвовій ділянці в плода справа. Вміст утворення гіпоехогенний з дрібнодисперсною суспензією. При кольоровому доплерівському картуванні — аваскулярний тип кровоплину



**Рис. 2.** Вагітність 34 тижні. Округле утворення у пахвовій ділянці в плода справа. Вміст утворення гіпоехогенний з дрібнодисперсною суспензією. При кольоровому доплерівському картуванні — аваскулярний характер кровоплину

тер кровоплину (рис. 2). Висновок: вагітність 34 тижні; утворення у пахвовій ділянці в плода справа (мікрокістозна кавернозна лімфангіома пахвової ділянки). Рекомендовано УЗД в динаміці з інтервалом у два тижні.

Під час динамічного спостереження пацієнтки виявлено збільшення розмірів утворення до 49×37 мм.

Розродження виконано в терміні 37–38 тижнів вагітності шляхом планового кесаревого розтину. Народився хлопчик масою тіла 3200 г, зростом 57 см, з оцінкою за шкалою Апгар 8 балів.

На момент огляду новонародженого по середньоключичній та передній пахвовій ділянці візуалізовано асиметричне випинання м'яко-еластичної консистенції при пальпації (рис. 3).

Виконано УЗД немовля. По середньо-ключичній та передній пахвовій ділянці в дитини



**Рис. 3.** Status localis у новонародженого з лімфангіомою

візуалізовано ехонегативне утворення з дрібнодисперсною суспензією розміром 44×38 мм. По задній поверхні утворення визначено множинні ехонегативні порожнини, що прилягали одна до одної. Візуалізовано гіперехогенний контур структури. При КДК відзначено аваскулярний тип кровоплину (рис. 4).

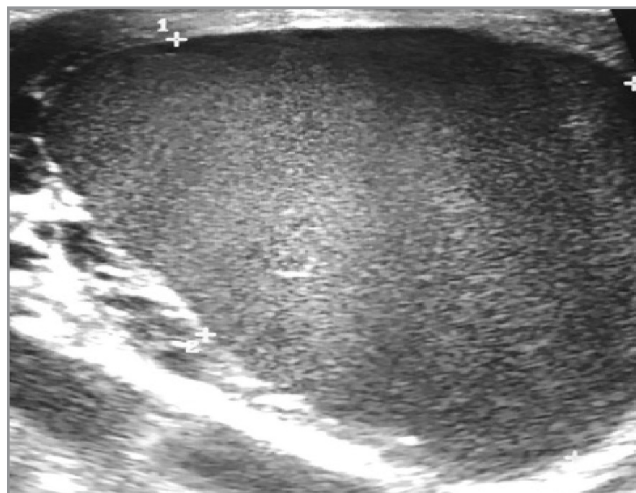
Пацієнтка та дитина виписані в задовільно-му стані під нагляд дитячого хірурга спеціалізованого лікувального закладу.

Дитина успішно прооперована у віці один місяць із подальшим направленням для динамічного спостереження.

Описаний клінічний випадок лімфангіоми є ілюстрацією динамічного пренатального та постнатального спостереження та його ультразвукової інтерпретації.

Рання діагностика доброякісних пухлин лімфатичної системи вродженого характеру дає змогу адекватно контролювати перебіг вагітності, пологів, оцінити плацентарну недостатність та передбачити ускладнення.

Ключові моменти УЗД полягають у визначенні розташування пухлини, розмірів і темпів її збільшення, особливостей гемодинаміки в місці розташування пухлини, що сприяє адекватному



**Рис. 4.** УЗД лімфангіоми в новонародженого, 1-ша доба

та своєчасному проведенню пологів у вагітної та зменшує частоту виникнення ускладнень у немовляти.

### Висновки

Найчастіший період виникнення лімфангіоми – другий та третій період вагітності, що потребує прицільного діагностичного пошуку утворення.

Прогноз при пухлинах залежить від місця локалізації та розмірів утворення.

Наприклад, при великих розмірах пухлини, розташованих у ділянках магістральних судин, середостінні, слід враховувати кардіогемодинаміку та особливості кровопостачання кінцівок, у разі аксилярного розташування.

Лімфангіоми часто становлять небезпеку для життєво важливих органів і систем, оскільки часто локалізуються не тільки в шкірі, але й у порожнинах організму (середостіння, горло, черевна порожнина), що потребує ретельного обстеження прилеглих органів з урахуванням поширення пухлини в навколишні тканини та органи.

*Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.*

### References/Література

- Chen CW et al. (2005). Cystic lymphangioma of the jejunal mesentery in an adult: a case report. *World Journal of Gastroenterology*. 11: 5084–5086.
- Chung JC, Song OP. (2009). Cystic lymphangioma of the jejunal mesentery presenting with acute abdomen in an adult. *Canadian Journal of Surgery*. 52: 286–288.
- Gleason CA, Devaskar SU. (2012). *Avery's diseases of the newborn*. 9th ed. Elsevier Inc. Saunders: 1498.
- Ji R et al. (2010). Multiple expressions of lymphatic markers and morphological evolution of newly formed lymphatics in lymphangioma and lymph node lymphangiogenesis. *Microvascular Research*. 80; 2: 195–201.
- Losanoff JE, Kjossev KT. (2005). Mesenteric cystic lymphangioma: an unusual cause of intra-abdominal catastrophe in an adult. *International Journal of Clinical Practice*. 59: 986–987.

6. Lu D et al. (2015). Giant fetal lymphangioma at chest wall and prognosis: Case report and literature review. *Taiwanese Journal of Obstetrics and Gynecology*. 54: 62–65.
7. Martin RJ, Fanaroff AA, Walsh MC. (2011). *Fanaroff and Martin's Neonatal-Perinatal Medicine. Diseases of the Fetus and Infant*. 9<sup>th</sup> ed. Elsevier Inc. Mosby: 1840.
8. Martín-Pérez E et al. (2010). Cystic lymphangioma of the lesser omentum in an adult. *The American Journal of Surgery*. 199; 2: 20–22.
9. Otaryan K. (2020). Vypadok prenatalnoi diahnostryky limfanhiomy perykarda u II trymestri vahitnosti. *Ob&Gyn Ultrasound and fetal medicine*. 2: 24–29. [Отарян К. (2020). Випадок пренатальної діагностики лімфангіоми перикарда у II триместрі вагітності. *Ob&Gyn Ultrasound and fetal medicine*. 2: 24–29].
10. Tanga S, Bhajee F. (2014). Small Bowel Lymphangioma. *Video Journal and Encyclopedia of GI Endoscopy*. 1: 663–665.
11. Tsukada H et al. (2002). Giant cystic lymphangioma of the small bowel mesentery: report of a case. *Surgery Today*. 32: 734–737.
12. Vovk YuM, Antoniuk OP, Prokopchuk NM. (2019). Rannia prenatalna diahnostryka rozvytku plodiv. *Pivdennoukrainskyi medychnyi naukovyi zhurnal*. 22: 4–11. [Вовк ЮМ, Антонюк ОП, Прокопчук НМ. (2019). Рання пренатальна діагностика розвитку плодів. *Південноукраїнський медичний науковий журнал*. 22: 4–11].
13. Wani I. (2009). Mesenteric lymphangioma in adult: a case series with a review of the literature. *Digestive Diseases and Sciences*. 54: 2758–2762.
14. Watanabe A et al. (2013). A case of mesenteric cystic lymphangioma in an adult which caused duodenal stenosis after resection. *International Journal of Surgery Case Reports*. 4; 2: 212–215.
15. Weeda VB, Booij KAC, Aronson DC. (2008). Mesenteric cystic lymphangioma: a congenital and an acquired anomaly? Two cases and a review of the literature. *Journal of Pediatric Surgery*. 43; 6: 1206–1208.
16. Yadav A et al. (2014). A rare case report of cystic lymphangioma of greater omentum in a child on MDCT. *Current Medicine Research and Practice*. 4; 2: 83–86.

**Відомості про авторів:**

**Карлова Олена Олександрівна** — д.мед.н., проф. каф. акушерства, гінекології і репродуктології НУОЗ України імені П.Л. Шуплика.

Адреса: м. Київ, вул. Дорогожицька, 9. <https://orcid.org/0000-0002-7683-9908>.

**Кузьмінська Олена Володимирівна** — к.мед.н., доц. каф. гігієни та екології № 4 НМУ імені О.О. Богомольця.

Адреса: м. Київ, пр. Перемоги, 34. <https://orcid.org/0000-0002-8259-1611>.

Стаття надійшла до редакції 04.09.2022 р.; прийнята до друку 14.11.2022 р.