

Роль предоперационной эмболизации в хирургии юношеских ангиофибром основания черепа

М.В. Нерсисян¹, С.Б. Яковлев^{1,2}, С.Р. Арустамян¹, Е.Ю. Бухарин¹, А.В. Бочаров¹,
Д.Н. Капитанов¹, В.А. Черкаев¹, А.Ю. Лубнин¹, Г.В. Данилов¹

¹ФГАУ «Национальный медицинский исследовательский центр нейрохирургии им. акад. Н.Н. Бурденко» Минздрава России;
Россия, 125047 Москва, 4-я Тверская-Ямская ул., 16;

²ФГБОУ ДПО «Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования» Минздрава России;
Россия, 125993 Москва, ул. Баррикадная, 2/1, стр. 1

Контакты: Марина Владиславовна Нерсисян Nermarina@yahoo.com

Введение. Юношеская ангиофиброма основания черепа (ЮАОЧ) — агрессивно растущая и часто рецидивирующая фиброзно-сосудистая доброкачественная опухоль, встречающаяся у подростков мужского пола. Удаление ЮАОЧ считается одной из самых сложных операций в ринопластике, так как оно нередко сопровождается сильным, иногда стремительным кровотечением. С начала 2000-х годов для уменьшения операционной кровопотери успешно используется эндоваскулярная эмболизация. Однако в научной литературе до сих пор нет единого мнения о целесообразности ее использования в связи с возможностью развития осложнений.

Цель исследования — оценка эффективности селективной ангиографии и эндоваскулярной эмболизации в уменьшении кровотечения при удалении ЮАОЧ разных стадий.

Материалы и методы. На базе ФГАУ «Национальный медицинский исследовательский центр нейрохирургии им. акад. Н.Н. Бурденко» Минздрава России проведено хирургическое лечение 134 пациентов с ЮАОЧ.

Результаты. У 110 пациентов с ЮАОЧ, у которых выполнена эмболизация, удалось осуществить тотальную, субтотальную или частичную деваскуляризацию опухоли. Тотальная деваскуляризация была достигнута при варианте кровоснабжения ЮАОЧ только из системы наружной сонной артерии (НСА) с 1 или 2 сторон (у первичных больных или у больных, которым ранее эмболизация не проводилась) ($n = 39$); субтотальная деваскуляризация — если кровоснабжение осуществлялось из системы НСА, внутренней сонной артерии (ВСА) с 1 стороны ($n = 52$), и частичная — если сохранялось кровоснабжение из НСА и значительное из системы ВСА с 2 сторон (у пациентов с рецидивом после предшествующей эмболизации микроспиралями или перевязки НСА с 1 или 2 сторон, а также с гигантскими ЮАОЧ) ($n = 19$). Поскольку подавляющее большинство пациентов, поступивших в клинику, были ранее прооперированы, а кровоснабжение ЮАОЧ при рецидивах более выраженное, провели сравнение степени деваскуляризации опухоли в зависимости от ее кровоснабжения у первичных больных и пациентов с рецидивом. Оказалось, как и можно было ожидать, что при первичных ЮАОЧ чаще удавалось провести тотальную деваскуляризацию, чем при ЮАОЧ с продолженным ростом, разница была статистически значимой ($p = 0,009$).

Заключение. Эндоваскулярная эмболизация статистически значимо снижает объем операционной кровопотери при удалении опухоли даже на поздних стадиях ($r = -0,51$, $p < 10^{-7}$). Перевязка НСА или проксимальная окклюзия ее ветвей микроспиралями приводит к быстрой перестройке кровоснабжения ангиофибром на коллатеральный кровоток из системы ВСА и невозможности проведения эмболизации при рецидивах опухоли.

Ключевые слова: юношеская ангиофиброма основания черепа, эндоваскулярная эмболизация, селективная ангиография

Для цитирования: Нерсисян М.В., Яковлев С.Б., Арустамян С.Р. и др. Роль предоперационной эмболизации в хирургии юношеских ангиофибром основания черепа. Опухоли головы и шеи 2018;8(1):28–37.

DOI: 10.17650/2222-1468-2018-8-1-28-37

Preop endovascular embolization in juvenile nasal angiofibroma management

M.V. Nersesyan¹, S.B. Yakovlev^{1,2}, S.R. Arustamyan¹, E. Yu. Bukharin, A.V. Bocharov¹,
D.N. Kapitanov¹, V.A. Cherekaev¹, A. Yu. Lubnin¹, G.V. Danilov¹

¹N.N. Burdenko National Medical Research Center of Neurosurgery, Ministry of Health of Russia;
16 4th Tverskaya-Yamskaya St., Moscow 125047, Russia;

²Russian Medical Academy of Continuing Professional Education, Ministry of Health of Russia;
Build. 1, 2/1 Barrikadnaya St., Moscow 125993, Russia

Introduction. Juvenile nasal angiofibroma (JNA) is an aggressively expanding fibro-vascular benign tumor, which occurs in male adolescents. Surgical management of JNA is considered as one of the most difficult in rhinology, because it very often has accompanied with pro-

fuse, streaming bleeding. Endovascular embolization has successfully used for reducing the operative blood loss since 2000th. Nevertheless, there is no consensus in the literature about its expediently using because of complications, which may occur.

Objective is to evaluate the effectiveness of selective angiography and endovascular embolization in reducing bleeding when removal of JNA of different stages.

Materials and methods. In the N.N. Burdenko National Medical Research Center of Neurosurgery 134 patients with JNA had been treated surgically.

Results. 110 patients with JNA, who underwent embolization, managed to perform total, subtotal or partial devascularization of the tumor. Total devascularization was achieved in JNA blood supply variant only from the external carotid artery (ECA) system from 1 or 2 sides (in primary patients or in patients who had not previously been embolized) ($n = 39$); subtotal devascularization, if the blood supply was carried out from the ECA system, internal carotid artery (ICA) on the 1 side ($n = 52$) and partial, if there was blood supply from the ECA and significant from the ICA system from 2 sides (in patients with relapse after previous embolization with microspirals or the ECA ligations from 1 or 2 sides, as well as with giant JNA ($n = 19$)). Since the vast majority of patients admitted to our clinic were previously operated on, and JNA blood supply in relapses was more pronounced, we performed the comparison of the degree of tumor devascularization depending on its blood supply in primary patients and patients with relapse. It turned out, as could be expected, that with the primary JNA often managed to execute a total devascularization than with JNA with continued increase, the difference was statistically significant ($p = 0.009$).

Conclusion. It accurately proved that embolization decreases intraoperative blood loss and reduce surgical risks even in later stages JNAs ($r = -0,51$, $p < 10^{-7}$). Ligation of ECA as well as proximal occlusion of its branches leads to rapid reconstruction blood supply from ICA and inability of its embolization if recurrence of JNA occurs.

Key words: juvenile nasal angiofibroma, endovascular embolization, selective angiography

For citation: Nersesyan M.V., Yakovlev S.B., Arustamyan S.R. et al. Preop endovascular embolization in juvenile nasal angiofibroma management. *Opukholi golovy i shei* = Head and Neck Tumors 2018;8(1):28–37.

Введение

Юношеская ангиофиброма основания черепа (ЮАОЧ) — это агрессивно растущая доброкачественная фиброзно-сосудистая опухоль, которая распространяется в околоносовые пазухи, носоглотку, крылонебную ямку. ЮАОЧ встречается исключительно у юношей-подростков. Клинически опухоль проявляется профузными носовыми кровотечениями и затруднением носового дыхания; при ее распространении в подвисочную ямку, орбиту и в полость черепа присоединяется отоневрологическая и нейроофтальмологическая симптоматика [1].

Хирургическое удаление ЮАОЧ, признанное основным методом их лечения [2], представляет собой одну из самых сложных проблем в оториноларингологии и краниофациальной нейроонкологии [3, 4]. Во-первых, опухоль плотно спаяна с окружающими тканями, что обуславливает высокую травматичность вмешательства, часто сопровождающегося сильным кровотечением, во-вторых, пациенты с ЮАОЧ — это дети, подростки, у которых массивная кровопотеря особенно опасна [5, 6]. Операционная кровопотеря при ЮАОЧ характеризуется не только большим объемом — от 2 до 8,5 л (!), но и высокой скоростью, что в некоторых случаях становится причиной летального исхода [7, 8].

В 60-е годы XX в. для уменьшения операционного кровотечения выполнялась перевязка наружной сонной артерии (НСА) с 1 или 2 сторон [1, 7–9]. Несмотря на это, в ходе операции все равно развивалось неконтролируемое профузное кровотечение, иногда приводившее к смерти пациента [7–9]. Опухоли с интра-

краниальным распространением вообще считались неоперабельными [1, 7, 8].

С появлением метода ангиографии стало возможным визуализировать особенности кровоснабжения ЮАОЧ у каждого пациента [3, 10, 11]. Стали понятны причины неэффективности перевязки НСА: уже на 3–4-е сутки после ее проведения кровоснабжение опухоли возобновлялось по анастомозам за счет ее ретроградного наполнения [10, 12, 13]. Кроме того, при агрессивном продолженном росте ангиофиброма получала дополнительное кровоснабжение из системы внутренней сонной артерии (ВСА), в том числе с противоположной стороны [3–5, 13].

Применение Г.Н. Робертсона и соавт. в 1972 г. селективной ангиографии и эмболизации сосудов опухоли позволило значительно уменьшить объем операционной кровопотери, обеспечить хороший обзор операционного поля и тем самым значительно снизить риск осложнений [14]. Однако на заре применения эмболизации нередко развивались тяжелые осложнения. Описаны случаи попадания эмболов в легкие или сосуды головного мозга с развитием гемиплегии, афазии, гомонимной гемианопсии [15, 16], а также случаи появления ороантральной фистулы из-за нарушения кровоснабжения мягкого неба после двусторонней эмболизации [17]. Поэтому Н. Мюлер и соавт. в 1975 г. указывали, что показания к эмболизации должны быть строго ограничены, что она должна применяться только при ЮАОЧ больших размеров [18]. Противниками эмболизации были Ж. Бургет и соавт. [19], Р.Г. Анютин [7] и другие авторы [20], по мнению которых ангиография и эмболизация связаны с риском для жизни

и здоровья больного, а эффект от них не превышает эффекта от перевязки НСА. Кроме того, некоторые авторы считали, что во время эмболизации происходит сморщивание опухоли, повышающее риск ее последующей неполной резекции [21, 22].

Из-за риска осложнений эмболизации ранее не было единого мнения о целесообразности ее применения. Но усовершенствование технологий и накопление опыта в эндоваскулярной хирургии привело к тому, что большинство хирургов во всем мире в настоящее время считают эмболизацию неотъемлемым этапом подготовки к удалению сосудистых опухолей [1, 12, 21, 23].

В ФГАУ «Национальный медицинский исследовательский центр нейрохирургии им. акад. Н.Н. Бурденко» Минздрава России (НМИЦ нейрохирургии им. акад. Н.Н. Бурденко) в течение 40 лет разрабатываются и успешно используются принципы внутрисосудистой эмболизации, в том числе при богато васкуляризованных опухолях головы и шеи. Они подробно освещены в работах Е.Ф. Некипелова, С.Р. Арустамяна, П.С. Дорохова и др. [10–12].

Цель исследования — оценка эффективности селективной ангиографии и эндоваскулярной эмболизации в уменьшении кровотечения при удалении ЮАОЧ разных стадий.

Материалы и методы

С 2002 г. по август 2017 г. в НМИЦ нейрохирургии им. акад. Н.Н. Бурденко было проведено хирургиче-

ское лечение ЮАОЧ у 134 пациентов мужского пола в возрасте от 7 до 36 лет (средний возраст $16,1 \pm 4,6$ года).

Особенностью контингента больных было то, что большинство из них поступали после прохождения лечения в других клиниках (табл. 1). У 100 (74,6 %) из 134 больных рост опухоли продолжался, несмотря на проведение лучевой терапии, химиотерапии или хирургических вмешательств (открытого доступа), иногда даже неоднократное.

Все больные были разделены на 2 группы: 69 пациентов были прооперированы эндоназально эндоскопически и 65 пациентов — через комбинированный доступ под эндоскопическим контролем.

Для определения стадий ангиофибром мы использовали классификацию UPMC (University of Pittsburgh Medical Center Staging System for Angiofibroma), разработанную С.Н. Snyderman и соавт. [24], которая, в отличие от остальных классификаций, учитывает не только распространенность опухоли, но и особенности ее кровоснабжения (табл. 2). Это особенно важно при рецидивах ЮАОЧ, поскольку возрастает риск развития дополнительного кровоснабжения по коллатералям, операционных осложнений, в частности неконтролируемого кровотечения.

Большинство пациентов — 102 (76,1 %) из 134 — поступили к нам в клинику с ангиофибромами поздних стадий (III, IV, V) (табл. 3).

Таблица 1. Лечение, которое проводилось у пациентов с юношеской ангиофибромой основания черепа до поступления в клинику НМИЦ нейрохирургии им. акад. Н.Н. Бурденко, n = 134

Table 1. Treatment, which was carried out in patients with juvenile angiofibroma of the skull base prior to admission to the clinic of the N.N. Burdenko National Medical Research Center of Neurosurgery

Лечение Treatment	Число пациентов Number of patients	
	абс. abs.	%
Не проводилось Was not carried out	34	25,4
Однократное хирургическое вмешательство (в том числе биопсия) Single surgery (including biopsy)	46	34,3
Однократное хирургическое вмешательство с предварительной эмболизацией Single surgery with a pre-embolization	12	9,0
Неоднократные (2–4) хирургические вмешательства и эмболизация Repeated (2–4) surgical interventions and embolization	16	11,9
Перевязка наружной сонной артерии, удаление опухоли, лучевая терапия Ligation of the external carotid artery, tumor removal, radiation therapy	16	11,9
Хирургическое лечение, лучевая терапия и химиотерапия Surgical treatment, radiation therapy and chemotherapy	7	5,2
Лучевая терапия Radiation therapy	3	2,3

Таблица 2. Классификация стадий юношеской ангиофибромы основания черепа University of Pittsburgh Medical Center (адаптировано из С.Н. Snyderman и соавт. [24])

Table 2. University of Pittsburgh Medical Center Staging System for Angiofibroma (adapted from C. H. Snyderman et al. [24])

Стадия Stage	Распространенность, особенности кровоснабжения Extension, vascularity
I	ЮАОЧ располагается медиальнее средней линии крылонебной ямки; нет большого распространения кзади от области роста Nasal cavity, medial pterygopalatine fossa
II	Распространение ЮАОЧ в околоносовые пазухи и латеральнее средней линии крылонебного пространства; нет дополнительного кровоснабжения после эмболизации Paranasal sinuses, lateral pterygopalatine fossa; no residual vascularity
III	ЮАОЧ располагается локально с эрозией или распространяется в основание черепа, а также в орбиту, подвисочную ямку; нет дополнительного кровоснабжения после эмболизации Scll base erosion, orbit, infratemporal fossa; no residual vascularity
IV	ЮАОЧ распространяется в область основания черепа, орбиты, подвисочной ямки, имеется костная деструкция; дополнительное кровоснабжение после эмболизации сохраняется Scll base erosion, orbit, infratemporal fossa; residual vascularity
V	Интракраниальное распространение ЮАОЧ, кровоснабжение после эмболизации сохраняется; М – медиальное распространение, L – латеральное распространение Intracranial extension, residual vascularity; M – medial extension, L – lateral extension

Примечание. ЮАОЧ – юношеская ангиофиброма основания черепа.

Таблица 3. Распределение прооперированных юношеских ангиофибром основания черепа по стадиям (по классификации University of Pittsburgh Medical Center, разработанной С.Н. Snyderman и соавт.), абс.

Table 3. Distribution of operated juvenile angiofibromas of the skull base in stages (according to the University of Pittsburgh Medical Center Staging System for Angiofibroma of C. H. Snyderman et al.), abs.

Доступ Access	I стадия Stage I	II стадия Stage II	III стадия Stage III	IV стадия Stage IV	V стадия Stage V	Всего Total
Эндоскопический Endoscopic	4	25	19	18	3	69
Комбинированный Combined	0	3	19	21	22	65
Всего Total	4	28	38	39	25	134

У всех больных с ЮАОЧ до операции была проведена селективная ангиография, у 110 из них – эмболизация сосудов опухоли из бассейна НСА. Не удалось осуществить эмболизацию у пациентов с рецидивом ЮАОЧ, у которых во время предыдущего лечения была выполнена: 1) перевязка НСА: у 3 – двусторонняя (рис. 1), у 13 – односторонняя (у 1 из этих пациентов удалось провести реконструкцию НСА); 2) проксимальная эмболизация микроспиральми *a. maxillaris* ($n = 8$). Еще у 1 больного, несмотря на это, опухоль продолжала расти, ее кровоснабжение восстановилось по коллатералям, к тому же дополнительно развилось интенсивное кровоснабжение из бассейнов обеих ВСА. Провести катетер к дистальным мелким сосудам

опухоли для эмболизации не удалось. У этого пациента были частые профузные носовые кровотечения, на контрольных снимках выявлен быстрый рост ЮАОЧ с прорастанием в кавернозный синус. В этой клинической ситуации было принято решение о проведении лучевой терапии.

Поскольку при эмболизации крупными частицами происходит окклюзия более крупных сосудов в их проксимальных отделах, гемодинамика опухоли при этом меняется: кровоснабжение осуществляется путем вовлечения коллатералей из других бассейнов. Результатом этого может быть ангиографическая картина «ложной» деваскуляризации опухоли, т.е. проксимальная окклюзия приводит к ослаблению

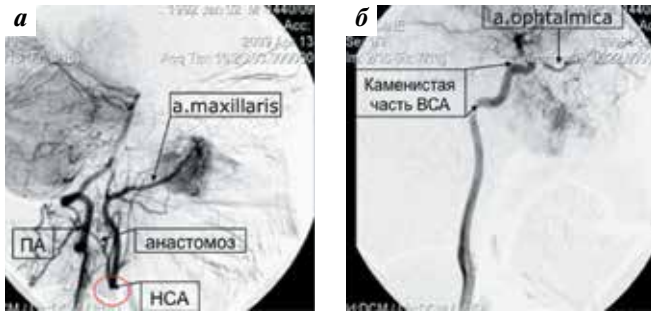


Рис. 1. Ангиограмма пациента Г. с рецидивом юношеской ангиофибромы основания черепа после перевязки наружной сонной артерии: а — интенсивное кровоснабжение ангиофибромы через *a. maxillaris* по анастомозам из системы позвоночной артерии выше уровня перевязки наружной сонной артерии; б — кровоснабжение опухоли из бассейна внутренней сонной артерии, ее каменистых ветвей и *a. ophthalmica*. ВСА — внутренняя сонная артерия, HCA — наружная сонная артерия, ПА — позвоночная артерия

Fig. 1. Angiogram of the patient G. with relapse of juvenile angiofibroma of the skull base after ligation of the external carotid artery: а — intensive blood supply of angiofibroma through *a. maxillaris* по анастомозам из системы позвоночной артерии выше уровня перевязки наружной сонной артерии; б — blood supply to the tumor from the pool of the internal carotid artery, its stony branches and *a. ophthalmica*. ВСА — внутренняя сонная артерия, HCA — наружная сонная артерия, ПА — позвоночная артерия

кровотока из ветвей HCA, но усилению кровотока из сосудов других бассейнов (ВСА, позвоночной артерии) через микроанастомозы. Дистальная эмболизация мелкими частицами, наоборот, предотвращает усиление кровотока из других бассейнов, так как эмболы, перекрывая мелкие сосуды, значительно ослабляют кровотоки в самой опухоли.

Этим объясняется кратковременность эффекта перевязки HCA и проксимальной окклюзии *a. maxillaris*. А учитывая то, что ЮАОЧ часто рецидивирует, такой метод уменьшения операционной кровопотери не только почти бесполезен, но и вреден, поскольку он не оставляет шанса на уменьшение интенсивности кровотечения при повторном удалении ЮАОЧ, а в ряде случаев делает повторное вмешательство невозможным из-за высокого риска неконтролируемого кровотечения.

Эмболизация проводилась у наших пациентов в день операции или за сутки до нее по определенной методике, которая описана ниже. Считается, что при использовании крупнодисперсных частиц срок должен быть не более 8 ч, при использовании мелкодисперсных он может быть больше, но не более 24 ч [1, 13].

У пациентов, которым было назначено эндоскопическое удаление ЮАОЧ, осуществлялась эмболизация дистальных сосудов опухоли мелкими частицами поливинилалкоголя (рис. 2). В результате дистальной окклюзии одного афферента может уменьшиться интенсивность кровоснабжения также и из афферентов смежных сосудистых бассейнов.

Эмболизация больших и гигантских ЮАОЧ, удалить которые планировали через комбинированный доступ,

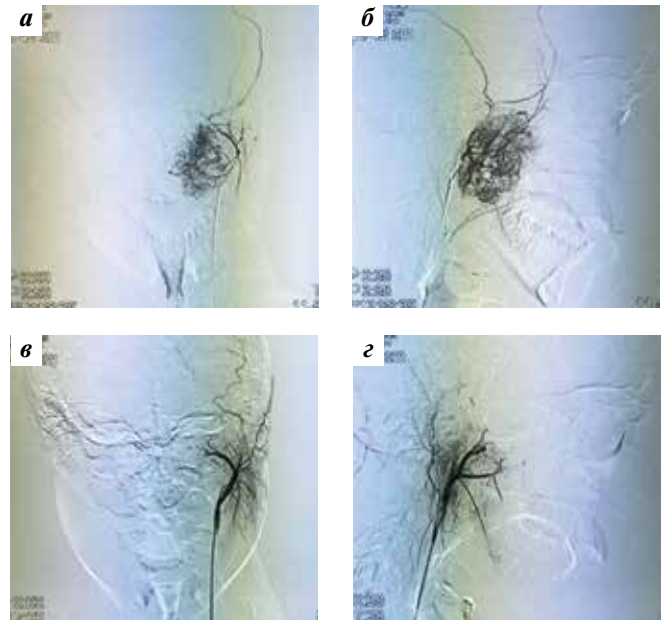


Рис. 2. Ангиограмма пациента М. с юношеской ангиофибромой основания черепа: а — фронтальная проекция до дистальной эмболизации; б — боковая проекция до эмболизации, сеть мелких сосудов опухоли из бассейна наружной сонной артерии; в — фронтальная проекция после эмболизации, сосудистая сеть опухоли полностью выключена, контрастируется *a. maxillaris*; г — боковая проекция после эмболизации, контрастируется *a. maxillaris*, сосудистая сеть опухоли выключена

Fig. 2. Angiogram of the patient M. with juvenile angiofibroma of the skull base: а — frontal projection prior to distal embolization; б — lateral projection prior to embolization, a network of small blood vessels of the tumor out of the pool of the external carotid artery; в — frontal projection after embolization, the vascular network of the tumor is completely turned off, contrast *a. maxillaris*; г — lateral projection after embolization, contrast *a. maxillaris*, the tumor's vascular network is off

проводилась по другой методике, так как открытые доступы, в частности широкие краниофациальные или лицевые, сами по себе достаточно травматичны, всегда сопровождаются кровотечением из-за пересечения ветвей HCA на этапе доступа. Кроме того, кровоснабжение ангиофибром на поздних стадиях по УРМС всегда осуществляется из бассейнов HCA и ВСА, с 1 или 2 сторон, поэтому полная деваскуляризация опухоли невозможна, и удаление таких ЮАОЧ, как правило, ведет к массивной кровопотере. В связи с этим сначала проводилась дистальная эмболизация сосудов опухоли мелкими частицами (<300 мкм) для уменьшения кровотечения при ее удалении, а затем проксимальная эмболизация более крупными частицами (>500 мкм) для уменьшения кровотечения во время доступа (рис. 3).

Такая методика позволила нам существенно снизить объем операционной кровопотери при удалении гигантских ЮАОЧ поздних стадий, как на этапе доступа, так и непосредственно при удалении опухоли, в результате чего сокращалось и время самой операции.

Для оценки данных использовали методы описательной статистики и непараметрические методы тестирования статистических гипотез. Тестирование

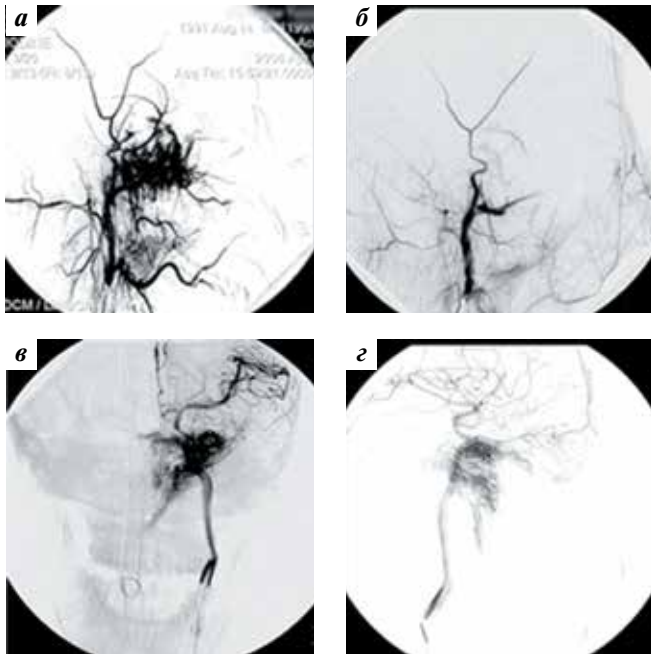


Рис. 3. Ангиограмма пациента Д. с гигантской юношеской ангиофибромой основания черепа: а — боковая проекция до эмболизации, интенсивное кровоснабжение из ветвей правой наружной сонной артерии; б — боковая проекция после эмболизации, кровоснабжение из бассейна правой наружной сонной артерии выключено, а. maxillaris почти не контрастируется; в — фронтальная проекция до эмболизации, кровоснабжение опухоли из левой внутренней сонной артерии; г — боковая проекция после эмболизации, кровоснабжение опухоли из ветвей кавернозного сегмента внутренней сонной артерии сохраняется

Fig. 3. Angiogram of the patient D. with giant juvenile angiofibroma of the skull base: а — lateral projection prior to embolization, intensive blood supply from the branches of the right external carotid artery; б — lateral projection after embolization, blood supply from the pool of the right external carotid artery is turned off, a. maxillaris almost no contrast; в — frontal projection prior to embolization, blood supply to the tumor from the left internal carotid artery; г — lateral projection prior to embolization, the blood supply of the tumor from the branches of the cavernous segment of the internal carotid artery remains

гипотез о различиях в распределениях изучаемых величин проводили с помощью критерия однородности χ^2 , теста Вилкоксона. Все процедуры подготовки, очистки, форматирования, разведочного анализа данных, оценки величин, тестирования гипотез, вывода результатов в табличном и графическом форматах были реализованы с помощью программного кода на объектно-ориентированном языке высокого уровня R.

Результаты

Селективная ангиография была проведена у 134 больных с ЮАОЧ, из них у 110 (82,1 %) удалось выполнить эмболизацию сосудов опухоли без каких-либо осложнений (табл. 4). У 24 пациентов, ранее прооперированных в других клиниках, эмболизация не могла быть осуществлена: у 16 — из-за перевязки НСА (в том числе у 3 — с 2 сторон), у 8 — из-за проксимальной окклюзии микроспиралью *a. maxillaris*.

Эффективность деваскуляризации опухоли оценивалась оперирующими хирургами субъективно по данным ангиографии в зависимости от кровоснабжения опухоли из системы НСА или ВСА с 1 или 2 сторон.

Удавалось провести **тотальную** деваскуляризацию ЮАОЧ, когда опухоль снабжалась кровью только из системы НСА с 1 или 2 сторон (как правило, при первичных опухолях I–III стадий по классификации UPMС). При контрольной ангиографии отмечалось отсутствие контрастирования сосудистой сети опухоли из всех сосудистых бассейнов.

Субтотальная деваскуляризация считалась эффективной, когда удавалось осуществить окклюзию основных питающих сосудов из системы НСА (с 1 или 2 сторон), но сохранялось слабое кровоснабжение из ветвей ВСА с 1 стороны (как правило, такой вариант деваскуляризации достигался при больших первичных

Таблица 4. Степень эмболизации опухоли в зависимости от варианта кровоснабжения юношеской ангиофибромы основания черепа, n = 110

Table 4. The degree of tumor embolization depending on the blood supply option of the juvenile angiofibroma of the skull base

Вариант кровоснабжения Blood supply	Число случаев эмболизации, абс. Number of cases of embolization, abs.		
	тотальной total	субтотальной subtotal	частичной partial
НСА с 1 стороны ECA from 1 side	28	6	0
НСА с 2 сторон ECA from 2 sides	6	22	5
НСА + ВСА с 1 стороны ECA + ICA from 1 side	0	16	8
НСА + ВСА с 2 сторон + ПА ECA + ICA from 2 sides + VA	2	8	9

Примечание. ВСА — внутренняя сонная артерия, НСА — наружная сонная артерия, ПА — позвоночная артерия.

Note. ICA — internal carotid artery, ECA — external carotid artery, VA — vertebral artery.

опухолях III стадии по классификации UPMС или при рецидивах после удаления с предшествующей эмболизацией сосудов опухоли).

Деваскуляризация была **частичной**, если, несмотря на эмболизацию ветвей НСА, оставалось достаточно интенсивным кровоснабжение из системы одной или обеих ВСА и других сосудов или если не удавалось провести окклюзию даже *a. maxillaris* (из-за предыдущей перевязки НСА или окклюзии *a. maxillaris* микро-спиралями), а также если рост опухоли продолжался у больных после лучевой терапии. Проведение частичной деваскуляризации осуществлялось, как правило, при ЮАОЧ IV, VL и VM стадий по классификации UPMС.

Мы провели оценку величины операционной кровопотери в зависимости от варианта кровоснабжения ЮАОЧ и степени деваскуляризации опухоли (рис. 4–6). Возможность проведения тотальной деваскуляризации опухоли, вполне ожидаемо, оказалась зависимой от варианта ее кровоснабжения. Эта зависимость была статистически значимой ($p = 0,009$).

На рис. 4–6 видно, что средний объем операционной кровопотери у больных после тотальной эмболизации составил примерно 1000 мл, после субтотальной – 2200 мл, после частичной – 4000 мл. Максимальный объем кровопотери составил соответственно 5000, 8000 и 9000 мл, причем после частичной эмболизации он превысил должный объем циркулирующей крови в 2–3 раза (!).

Наши данные убедительно демонстрируют зависимость кровопотери от степени эмболизации опухоли, т.е. чем лучше проведена эмболизация, тем меньше операционная кровопотеря. Нами выявлена статистически значимая отрицательная корреляция между степенью эмболизации и величиной операционной кровопотери ($r = -0,51$, $p < 10^{-7}$).

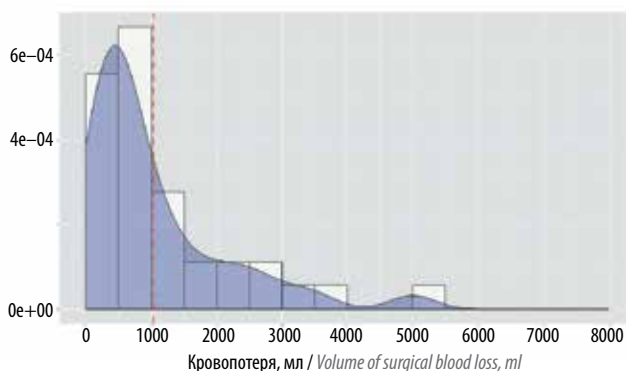


Рис. 4. Распределение объема операционной кровопотери среди пациентов с юношеской ангиофибромой основания черепа, у которых эмболизация была проведена тотально. Красным пунктиром показано среднее значение объема операционной кровопотери

Fig. 4. Distribution of the volume of surgical blood loss among patients with juvenile angiofibroma of the skull base, in which embolization was carried out totally. The red dotted line shows the average value of the volume of operating blood loss

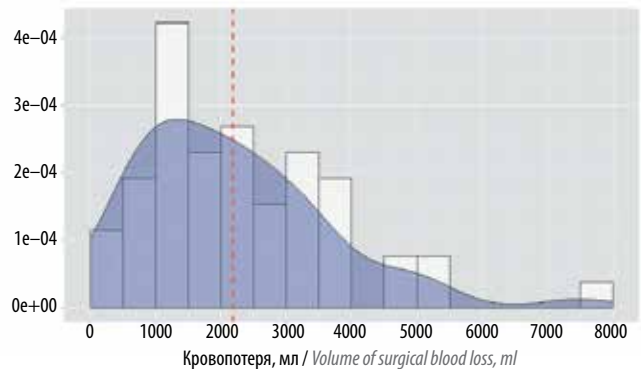


Рис. 5. Распределение объема операционной кровопотери среди пациентов с юношеской ангиофибромой основания черепа, у которых деваскуляризация проведена субтотально. Красным пунктиром показано среднее значение объема операционной кровопотери

Fig. 5. Distribution of the volume of surgical blood loss among patients with juvenile angiofibroma of the skull base, in which embolization was carried out subtotally. The red dotted line shows the average value of the volume of operating blood loss

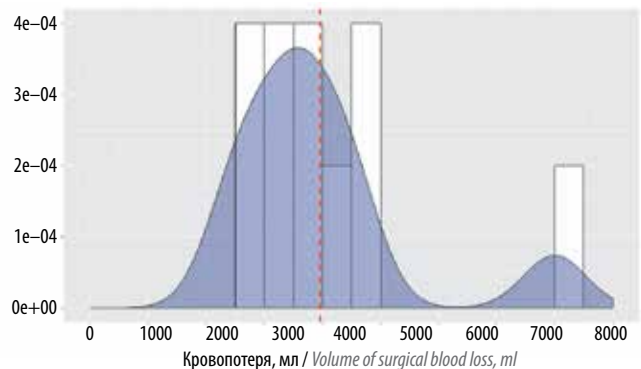


Рис. 6. Распределение объема операционной кровопотери среди пациентов с юношеской ангиофибромой основания черепа, у которых деваскуляризация проведена частично. Красным пунктиром показано среднее значение объема операционной кровопотери

Fig. 6. Distribution of the volume of surgical blood loss among patients with juvenile angiofibroma of the skull base, in which embolization was carried out partially. The red dotted line shows the average value of the volume of operating blood loss

Объем операционной кровопотери также был статистически значимо меньше при удалении первичных ЮАОЧ – 1007 (100–3500) мл по сравнению с таковым при удалении ЮАОЧ, продолжавших расти, – 1667 (1200–4850) мл ($p = 0,02$).

Обсуждение

В научной литературе нет единого мнения о целесообразности и необходимости проведения эндоваскулярной эмболизации перед удалением ЮАОЧ, нет единого протокола ее наиболее эффективного использования при ангиофибромах различных стадий [24, 25]. В некоторых клиниках России продолжают делать перевязку НСА при ангиофибромах, что приводит к быстрому развитию коллатерального кровотока из системы ВСА. А если учесть высокую вероятность

рецидива ЮАОЧ и быстрого агрессивного роста опухоли в интраорбитальном или интракраниальном направлении, то перевязка делает невозможным в дальнейшем проведение эмболизации сосудов опухоли и, соответственно, ее удаление из-за высокого риска неконтролируемого операционного кровотечения. Стоит отметить, что некоторые авторы, утверждающие, что эмболизация не нужна, эту методику не используют просто из-за отсутствия возможности ее применения в клинике [22]. Поэтому важно планировать операцию так, чтобы, уменьшив операционное кровотечение при помощи эмболизации, не оставить остаток опухоли в труднодоступных местах.

Наши результаты согласуются с данными других исследователей о том, что предоперационная эмболизация является важным этапом хирургического лечения ангиофибром, поскольку позволяет существенно уменьшить операционную кровопотерю, снизить необходимость гемотрансфузий [1–5]. Так, J.R. Li и соавт. отметили, что объем операционной кровопотери у пациентов, подвергшихся эмболизации, почти в 2 раза меньше, чем у тех, у кого ее не проводили [21]. S.C. Leong провел систематический обзор результатов хирургического лечения ЮАОЧ поздних стадий, опубликованных с января 1990 г. до 1 июня 2012 г. и размещенных в PubMed. Из 32 статей (422 пациента) было отобрано 15 публикаций, отвечающих установленным критериям, в которых были представлены 72 случая ЮАОЧ с интракраниальным распространением, удаленных через открытые и эндоскопические доступы. Средний объем операционной кровопотери у всех пациентов составил 1709 мл (от 400 до 8500 мл), из них у 39 пациентов, у которых проводилась эмболизация, — 1449 мл (от 400 до 4900 мл), что достоверно ниже ($p < 0,05$), чем у пациентов, у которых она не проводилась (в среднем 4250 мл, варьировал от 1500 до 8500 мл) [26]. Однако статистического анализа данных, собранных в одной клинике, в научных публикациях мы

не нашли, что связано прежде всего с относительной редкостью ЮАОЧ вне эндемичных районов. Полученные нами результаты могут уточнить вышеприведенные данные, так как основаны на анализе большего числа случаев.

Заключение

Выявлена четкая зависимость объема операционной кровопотери от достигнутой в результате эмболизации степени деваскуляризации ЮАОЧ. Средняя кровопотеря у больных с ЮАОЧ после тотальной деваскуляризации составила около 1000 мл (варьировала от 50 до 5000 мл), после субтотальной — 2200 мл (от 600 до 8000 мл), после частичной — 4000 мл (от 1500 до 9000 мл). Установлена статистически значимая отрицательная корреляция между степенью тотальности деваскуляризации и объемом операционной кровопотери ($r = -0,51, p < 10^{-7}$).

Наши данные показывают, что нецелесообразно выполнять перевязку НСА или проксимальную окклюзию ветвей НСА микроспиральями ввиду быстрой перестройки кровоснабжения ЮАОЧ на коллатеральный кровоток из системы ВСА, что исключает проведение эмболизации в последующем у пациентов с этой часто рецидивирующей и агрессивно растущей сосудистой опухолью. Напротив, эмболизация перед удалением ЮАОЧ абсолютно необходима, так как она достоверно уменьшает объем операционной кровопотери, позволяя проводить эндоскопическое вмешательство радикально, с минимальной операционной травмой, а также удалять гигантские ЮАОЧ, ранее считавшиеся неоперабельными. В зависимости от используемого материала интервал до операции может быть различным. Мы проводили эмболизацию непосредственно перед операцией в качестве ее 1-го этапа или за 24 ч до нее. Перед удалением ЮАОЧ важно провести селективную ангиографию для определения варианта ее кровоснабжения и оценки возможности ее эмболизации.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Lund V.J., Stammberger H., Nicolai P. et al.; European Rhinologic Society Advisory Board on Endoscopic Techniques in the Management of Nose, Paranasal Sinus and Skull Base Tumours. European position paper on endoscopic management of tumours of the nose, paranasal sinuses and skull base. *Rhinol Suppl* 2010;(22): 1–143. PMID: 20502772.
2. Капитанов Д.Н., Нерсисян М.В., Лопатин А.С. и др. Эндоскопический эндоназальный доступ при удалении юношеской ангиофибromы носоглотки. *Российская ринология* 2009;17(4): 18–22. [Kapitanov D.N., Nersisyan M.V., Lopatin A.S. et al. Endonasal endoscopic approach in removal of juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Rossiyskaya rinologiya = Russian Rhinology* 2009;17(4):18–22. (In Russ.)].
3. Гольбин Д.А., Черкаев В.А., Голанов А.В. и др. Тактика лечения распространенных краниофациальных ювенильных ангиофибром. *Онкохирургия* 2012;4(4): 5–14. [Gol'bin D.A., Cherekaev V.A., Golanov A.V. et al. The locally advanced craniofacial juvenile angiofibromas treatment tactics. *Onkokhirurgiya = Oncosurgery* 2012;4(4):5–14. (In Russ.)].
4. Nersisyan M., Kapitanov D., Lopatin A. et al. Our experience in endoscopic management of relapsed juvenile nasal angiofibroma. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2009;266(7):1076–7. DOI: 10.1007/s00405-009-0987-7.
5. Nicolai P., Bolzoni A., Farina V.D. et al. Endoscopic surgery for juvenile angiofibroma: a critical review of indications after 46 cases. *Am J Rhinol Allergy* 2010;24(2):e67–72. DOI: 10.2500/ajra.2010.24.3443. PMID: 20338105.
6. Нерсисян М.В., Лубнин А.Ю., Капитанов Д.Н. и др. Редкое осложнение эндоскопического эндоназального удале-

- ния юношеской ангиофибромы. Журнал «Вопросы нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко» 2008;(3):46–9. [Nersesyan M.V., Lubnin A.Yu., Kapitanov D.N. et al. A rare complication after endoscopic removal of juvenile angiofibroma. Zhurnal "Voprosy neyrokhirurgii im. N.N. Burdenko" = Problems of Neurosurgery n. a. N.N. Burdenko 2008;(3):46–9. (In Russ.)].
7. Анютин Р.Г. Лечение больных с юношеской ангиофибромой основания черепа: методические рекомендации. М., 1987. 12 с. [Anyutin R.G. Treatment of juvenile nasal angiofibroma patients: clinical recommendations. Moscow, 1987. 12 p. (In Russ.)].
8. Krekorian E.A., Kato R.H. Surgical management of nasopharyngeal angiofibroma with intracranial extension. Laryngoscope 1977;87(2):154–64. DOI: 10.1288/00005537-197702000-00002. PMID: 190492.
9. Witt T.R., Shah J.P., Sternberg S.S. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma. A 30 year clinical review. Am J Surg 1983;146(4):521–5. PMID: 6312826.
10. Арустамян С.Р., Лубнин А.Ю., Эмболизация сосудов экстра-интракраниальных опухолей. Журнал «Вопросы нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко» 2002;(4):30–4. [Arustamyan S.R., Lubnin A.Yu. Embolization of extra-intracranial tumors. Zhurnal "Voprosy neyrokhirurgii im. N.N. Burdenko" = Problems of Neurosurgery n. a. N.N. Burdenko 2002;(4):30–4. (In Russ.)].
11. Дорохов П.С., Капитанов Д.Н., Бочаров А.В. и др. Эндоваскулярное лечение профузных краниофациальных кровотечений, возникающих при поражении ветвей наружной сонной артерии. Российская ринология 2012;(4):11–5. [Dorokhov P.S., Kapitanov D.N., Bocharov A.V. et al. Endovascular treatment of profuse craniofacial bleedings from disorders of external carotid artery branches. Rossiyskaya rinologiya = Russian Rhinology 2012;(4):11–5. (In Russ.)].
12. Некипелов Е.Ф., Корниенко В.Н. Терапевтическая эмболизация ветвей наружной сонной артерии у больных сосудистыми поражениями головы. В сб.: Эндоваскулярная (катетерная) терапия. М., 1979. С. 22–23. [Nekipelov E.F., Kornienko V.N. Therapeutic embolization of external carotid artery branches in patients with vascular brain disorders. In: Endovascular (catheter) therapy. Moscow, 1979. Pp. 22–23. (In Russ.)].
13. Rowan N.R., Zwagerman N.T., Heft-Neal M.E. et al. Juvenile nasal angiofibromas: a comparison of modern staging systems in an endoscopic era. J Neurol Surg B Skull Base 2017;78(1):63–7. DOI: 10.1055/s-0036-1584903. PMID: 28180045.
14. Roberson G.H., Biller H., Sessions D.G., Ogura J.H. Presurgical internal maxillary artery embolization in juvenile angiofibroma. Laryngoscope 1972;82(8):1524–32. DOI: 10.1288/00005537-197208000-00015. PMID: 4340941.
15. Casansco A., Houdart E., Biondi A. et al. Major complications of percutaneous embolization of skull base tumors. AJNR Am J Neuroradiol 1999;20(1):179–81. PMID: 9974079.
16. Lefkowitz M., Giannotta S.I., Hieshima G. et al. Embolization of neurosurgical lesions involving the ophthalmic artery. Neurosurgery 1998;43(6):1298–303. PMID: 9848842.
17. Petruson K., Rodriguez-Catarino M., Petruson B., Finizia C. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: long-term results in preoperative embolized and non-embolized patients. Acta Otolaryngol 2002;122(1):96–100. PMID: 11876606.
18. Muler H., Paquelin F., Cotin G. et al. Nasopharyngeal fibroma and embolization. Ann Otolaryngol Chir Cervicofac 1975;92(6):332–4. PMID: 1217826.
19. Bourguet J., Bourdinière J., Carsin J. et al. On 30 cases of naso-pharyngeal fibromas (author's transl). Ann Otolaryngol Chir Cervicofac 1980;97(4–5):295–303. PMID: 7406413.
20. Chandler J.R., Goulding R., Moskowitz L., Quencer R.M. Nasopharyngeal angiofibromas: staging and management. Ann Otol Rhinol Laryngol 1984;93(4 Pt 1):322–9. DOI: 10.1177/000348948409300408. PMID: 6087710.
21. Li J.R., Qian J., Shan X.Z. et al. Evaluation of the effectiveness of preoperative embolization in surgery for nasopharyngeal angiofibroma. Eur Arch Otorhinolaryngol 1998;255(8):430–2. PMID: 9801864.
22. Borghei P., Baradaranfar M.H., Borghei S.H., Sokhandon F. Transnasal endoscopic resection of juvenile nasopharyngeal angiofibroma without preoperative embolization. Ear Nose Throat J 2006;85(11):740–6. PMID: 17168151.
23. Нерсисян М.В., Капитанов Д.Н., Шелеско Е.В., Зинкевич Д.Н. Дифференцированный подход к диагностике и лечению юношеских ангиофибром основания черепа. Техника эндоскопических операций. Folia Otorhinolaryngologiae et Pathologiae Respiratoriae 2017;23(3):17–34. [Nersesyan M.V., Kapitanov D.N., Shelesko E.V., Zinkevich D.N. Differential approach to endoscopic juvenile nasal angiofibroma management. Technique of endoscopic surgeries. Folia Otorhinolaryngologiae et Pathologiae Respiratoriae 2017;23(3):17–34. (In Russ.)].
24. Snyderman C.H., Pant H., Carrau R.L., Gardner P. A new endoscopic staging system for angiofibromas. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 2010;136(6):588–94. DOI: 10.1001/archoto.2010.83. PMID: 20566910.
25. Onerci M., Gumus K., Cil B., Eldem B. A rare complication of embolization in juvenile nasopharyngeal angiofibroma. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2005;69(3):423–8. DOI: 10.1016/j.ijporl.2004.10.015. PMID: 15733605.
26. Leong S.C. A systematic review of surgical outcomes for advanced juvenile nasopharyngeal angiofibroma with intracranial involvement. Laryngoscope 2013;123(5):1125–31. DOI: 10.1002/lary.23760. PMID: 23553370.

Благодарность. Авторы выражают благодарность всем сотрудникам НМИЦ нейрохирургии им. акад. Н.Н. Бурденко, которые участвуют в лечении детей с юношескими ангиофибромами основания черепа, а также фонду «Подари жизнь» за помощь нашим детям.

Acknowledgement. The authors express their gratitude to the team of the N.N. Burdenko National Medical Research Center of Neurosurgery who take part in treatment of children with juvenile nasal angiofibroma; the charitable foundation «Podari Zhizn» for helping our children.

Вклад авторов

М.В. Нерсисян: разработка дизайна исследования, проведение эндоскопических вмешательств, написание текста статьи;

С.Б. Яковлев: проведение ангиографии и эмболизации, сбор данных, научное редактирование статьи;

С.Р. Арустамян: проведение ангиографии и эмболизации, сбор данных, научное редактирование статьи;

Е.Ю. Бухарин: проведение ангиографии и эмболизации, сбор данных;
А.В. Бочаров: проведение ангиографии и эмболизации, сбор данных;
Д.Н. Капитанов: проведение эндоскопических вмешательств;
В.А. Черехаев: проведение операций через комбинированный доступ;
А.Ю. Лубнин: проведение анестезии, научное редактирование статьи;
Г.В. Данилов: статистическая обработка данных.

Authors' contributions

M.V. Nersesyan: developing the research design, endoscopic treatment, article writing;
S.B. Yakovlev: angiography and embolization, obtaining data for analysis, article scientific editing;
S.R. Arustamyan: angiography and embolization, obtaining data for analysis, article scientific editing;
E.Yu. Bukharin: angiography and embolization, obtaining data for analysis;
A.V. Bocharov: angiography and embolization, obtaining data for analysis;
D.N. Kapitanov: endoscopic treatment;
V.A. Cherekaev: surgical treatment by combined access;
A.Yu. Lubnin: anesthesia, article scientific editing;
G.V. Danilov: statistical analysis.

ORCID авторов

М.В. Нерсисян: <https://orcid.org/0000-0003-2719-5031>
С.Б. Яковлев: <https://orcid.org/0000-0002-0798-2604>
С.Р. Арустамян: <https://orcid.org/0000-0003-4645-3331>
Е.Ю. Бухарин: <https://orcid.org/0000-0002-9980-2518>
Д.Н. Капитанов: <https://orcid.org/0000-0003-3004-2140>
А.Ю. Лубнин: <https://orcid.org/0000-0003-2595-5877>
Г.В. Данилов: <https://orcid.org/0000-0003-1442-5993>

ORCID of authors

M.V. Nersesyan: <https://orcid.org/0000-0003-2719-5031>
S.B. Yakovlev: <https://orcid.org/0000-0002-0798-2604>
S.R. Arustamyan: <https://orcid.org/0000-0003-4645-3331>
E.Yu. Bukharin: <https://orcid.org/0000-0002-9980-2518>
D.N. Kapitanov: <https://orcid.org/0000-0003-3004-2140>
A.Yu. Lubnin: <https://orcid.org/0000-0003-2595-5877>
G.V. Danilov: <https://orcid.org/0000-0003-1442-5993>

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

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

Финансирование. Исследование проведено без спонсорской поддержки.

Financing. The study was performed without external funding.

Информированное согласие. Все пациенты подписали информированное согласие на участие в исследовании.

Informed consent. All patients gave written informed consent to participate in the study.

Статья поступила: 30.01.18. **Принята к публикации:** 12.03.18

Article received: 30.01.18. **Accepted for publication:** 12.03.18