

Хондрорадионекроз гортани спустя 63 года после лучевой терапии: клинический случай

М.Г. Костова, А.В. Карпенко, Р.Р. Сибгатуллин

ГБУЗ «Ленинградский областной онкологический диспансер»; Россия, 191104 Санкт-Петербург, Литейный просп., 37

Контакты: Мариана Георгиевна Костова kostova.90@mail.ru

Хондрорадионекроз гортани — редкое позднее осложнение лучевой терапии, которое чаще всего возникает через 1 год после облучения. Тем не менее описаны единичные случаи отсроченного хондрорадионекроза гортани — спустя 25 и даже 50 лет. В статье представлено собственное клиническое наблюдение редкого случая хондрорадионекроза гортани, развившегося через 63 года после лучевой терапии по поводу папилломатоза гортани. Это самый длинный интервал между лучевой терапией и хондрорадионекрозом гортани, описанный в литературе.

Ключевые слова: хондрорадионекроз гортани, папилломатоз гортани

Для цитирования: Костова М.Г., Карпенко А.В., Сибгатуллин Р.Р. Хондрорадионекроз гортани спустя 63 года после лучевой терапии: клинический случай. Опухоли головы и шеи 2018;8(1):62–6.

DOI: 10.17650/2222-1468-2018-8-1-62-66

Chondroradionecrosis of the larynx in 63 years after radiation therapy: a case report

M.G. Kostova, A.V. Karpenko, R.R. Sibgatullin

Leningrad Regional Oncologic Dispensary; 37 Liteyny Ave., Saint Petersburg 191104, Russia

Chondroradionecrosis of the larynx is a rare and late complication after radiation therapy. The vast majority of patients present the symptoms within 1 year of treatment. However there are described delayed cases up to 25 and even 50 years after treatment. In the article is described a rare clinical case from our own practice. It's about a patient who developed laryngeal chondroradionecrosis in 63 years after radiation therapy for recurrent respiratory papillomatosis. The case represents the longest in interval between initial treatment and presentation of chondroradionecrosis of the larynx in literature.

Key words: chondroradionecrosis of the larynx, recurrent respiratory papillomatosis

For citation: Kostova M.G., Karpenko A.V., Sibgatullin R.R. Chondroradionecrosis of the larynx in 63 years after radiation therapy: a case report. Opuholi golovy i shei = Head and Neck Tumors 2018;8(1):62–6.

Введение

Хондрорадионекроз гортани — редкое позднее осложнение лучевой терапии с частотой менее 1 % [1]. Данное осложнение может привести к серьезным последствиям, вплоть до летального исхода, что обуславливает актуальность его изучения. Хондрорадионекроз гортани обычно возникает, по данным разных авторов, через 1–3 года после терапии [2]. Тем не менее описаны единичные случаи развития хондрорадионекроза гортани спустя 25 и даже 53 года после лучевой терапии [3, 4].

Рецидивирующий папилломатоз гортани является доброкачественным заболеванием, однако у 19 % детей и у 17 % взрослых наблюдается агрессивный рост папиллом, что требует многократного хирургического вмешательства [5]. В середине прошлого сто-

летия таким пациентам зачастую назначали и лучевую терапию.

Ниже представлено клиническое наблюдение пациентки, длительно страдающей папилломатозом гортани, у которой спустя 63 года после лучевой терапии развился некротический процесс в гортани на фоне рубцового стеноза. Нами был диагностирован хондрорадионекроз гортани.

Клиническое наблюдение

Пациентка М., 69 лет, поступила в отделение опухолей головы и шеи ГБУЗ «Ленинградский областной онкологический диспансер» (ГБУЗ ЛООД) в октябре 2016 г. с жалобами на боли в области шеи и дисфагию на протяжении последних 3 мес.

Из анамнеза. В возрасте 1 года 6 мес пациентке установлен диагноз «папилломатоз гортани». В связи с нарастающим стенозом выполнена ларингостомия. В возрасте 6 лет пациентка прошла курс рентгенотерапии области шеи; в связи с отсутствием медицинской документации общая доза доподлинно неизвестна. Далее было проведено закрытие ларингостомы, и в течение последующих 10 лет пациентка неоднократно подвергалась хирургическим вмешательствам: ежегодно осуществлялось иссечение рубцовых изменений в гортани. В возрасте 17 лет в связи с асфиксией была повторно выполнена ларингостомия, а через 2 года была выведена трахеоларингостома. Лишь в августе 2016 г. пациентка вновь обратилась за медицинской помощью в связи с жалобами на затруднение прохождения пищи. При эзофагоскопии был обнаружен стеноз устья верхней трети пищевода. Несколько раз выполнялась биопсия, по данным которой онкопатологии не выявлено. Затем пациентка обратилась в ГБУЗ ЛООД.

При осмотре через трахеоларингостому: некротические ткани с язвенной поверхностью. Перихондрит гортани.

При непрямой ларингоскопии: вестибулярный и средний отделы гортани необозримы из-за отека. Шейные лимфатические узлы не пальпируются (рис. 1).

По данным рентгенографии пищевода: регистрируются свищ верхней трети пищевода, стриктура нижней трети пищевода.

По данным компьютерной томографии органов шеи: признаки перихондрита, хондронекроза гортани (рис. 2).

Для определения дальнейшей тактики предпринята попытка верификации диагноза: под наркозом проведена прямая опорная ларингоскопия. Обнаружен рубцовый стеноз глоточно-пищеводного соустья, которое было сужено до 1 мм. Это являлось причиной жалоб пациентки на дисфагию. Выполнена биопсия задней стенки



Рис. 1. Внешний вид пациентки при первичном осмотре
Fig. 1. The appearance of the patient at the initial examination

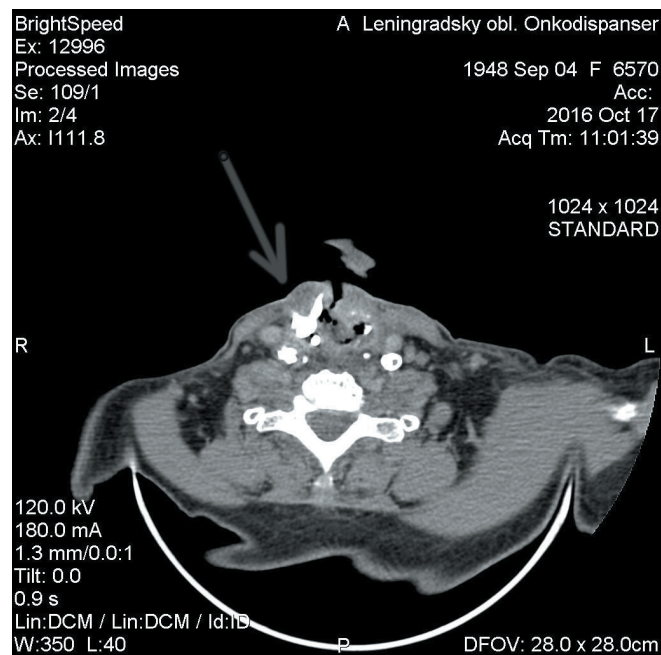


Рис. 2. Компьютерная томография пациентки с хондронекрозом гортани (указан стрелкой)

Fig. 2. Computed tomography of a patient with chondronecrosis of the larynx (arrow indicated)

гортани, в ходе которой выявлена плоскоклеточная папиллома (папилломатоз).

Анатомическая структура гортани была сильно изменена: она представляла собой рубцово-измененную и некротическую ткань на фоне воспалительного процесса. Функционально гортань также была несостоятельна: на протяжении многих лет дыхание осуществлялось через трахеоларингостому. Практически полностью отсутствовала голосовая функция. Поэтому было принято решение об оперативном лечении в объеме ларингэктомии и тиреоидэктомии (с учетом наличия узловых образований в щитовидной железе).

Интраоперационно обнаружено, что обе доли щитовидной железы резко уменьшены в размерах, склерозированы, спаяны с гортанью. Справа предпринята попытка отделения доли от гортани, которая окончилась неудачей, слева в доле выявлен плотный узел диаметром 1 см с кальцинатами, доля сдвинута медиально на препарат. Нижние констрикторы глотки не дифференцировались, были представлены рубцовой тканью. Трахея была вскрыта ниже трахеостомы, отделена от пищевода до уровня входа в него, далее отделение было невозможно из-за рубцового процесса, в связи с чем гортань была вскрыта через valleculu и отсечена от глотки. При ревизии гортани обнаружено, что полностью отсутствовала печатка перстневидного хряща, задняя стенка и правая боковая стенка гортани были представлены язвенным дефектом грязно-серого цвета размером 3 × 4 см. После удаления гортани был выявлен участок практически полного заращения пищевода от входа в него вниз на 2 см. Данный



Рис. 3. Удаленный макропрепарат
Fig. 3. Removed gross specimen

участок был иссечен с формированием циркулярного дефекта шейного отдела пищевода протяженностью 2 см (рис. 3).

От первичной пластики решено было воздержаться в связи с активным и обширным воспалением раны и неясным прогнозом из-за отсутствия гистологической верификации. Задняя стенка гортаноглотки была частично мобилизована и сшита с задней стенкой культи пищевода (рис. 4). Сформирована фарингоэзофагостома. Оформлена трахеостомы.

Данные гистологического исследования послеоперационного материала показали наличие высокодифференцированной малоинвазивной фолликулярной микрокарциномы (0,7 см) в правой доле щитовидной железы, а также умеренно-дифференцированной плоскоклеточной карциномы (0,5 см) в шейном отделе пищевода с очаговой инвазией в подслизистый слой (0,2 см). При этом в гортани было массивное разрастание плотной



Рис. 4. Ларингэктомия с тиреоидэктомией. 1 — задняя стенка гортаноглотки, 2 — задняя стенка культи пищевода
Fig. 4. Laryngectomy with thyroidectomy. 1 — back wall of the laryngopharynx, 2 — back wall of the esophagus stump



Рис. 5. Внешний вид пациентки при поступлении для выполнения пластики фарингоэзофагостомы
Fig. 5. The appearance of the patient at admission to perform of the pharyngo-esophagectomy plastics

фиброзной ткани с изъязвлением, диффузным гнойно-некротическим воспалением, кровоизлияниями, расплавлением хрящевой ткани (хронический перихондрит), участками многослойного плоского эпителия с метоплазией.

Спустя год после оперативного лечения признаков рецидива опухоли не выявлено, в связи с чем пациентка поступила в отделение ГБУЗ ЛООД для выполнения пластики фарингоэзофагостомы (рис. 5).

Пластику фарингоэзофагостомы выполняли под эндотрахеальным наркозом с использованием супраклавикулярного лоскута. Дефект глотки ушивали местными тканями (остатками слизистой оболочки глотки). Оставшийся дефект кожи был закрыт супраклавикулярным лоскутом, развернутым на 90° (по типу пропеллера) (рис. 6). Супраклавикулярный лоскут оказался оптимальным в данном случае, так как он достаточно пластичен и не содержит массивной мышечной порции (как, например, лоскут с большой грудной мышцы).

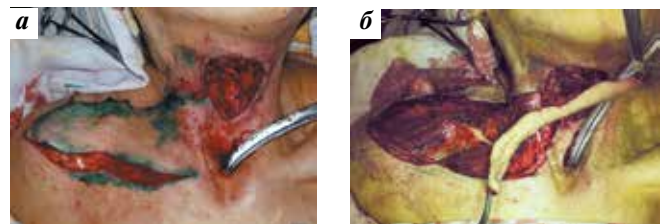


Рис. 6. Пластика фарингоэзофагостомы: а — дефект глотки ушит местными тканями; выкроен супраклавикулярный лоскут справа; б — супраклавикулярный лоскут мобилизован, ротирован на 90°
Fig. 6. The pharyngo-esophagectomy plastics: а — defect of the pharynx was sutured with local fabrics; cut out supraclavicular flap on the right; б — supraclavicular flap is mobilized, retired in 90°



Рис. 7. Внешний вид пациентки в послеоперационном периоде
Fig. 7. The appearance of the patient in the postoperative period



Рис. 8. Обзорная рентгенограмма с барием через 1,5 мес после операции.
Прходимость пищевода полностью восстановлена
Fig. 8. Survey radiogram with barium in 1.5 months after surgery. Esophageal patency completely recovered

Послеоперационный период протекал без осложнений (рис. 7). Спустя 1,5 мес данных, свидетельствующих о стенозе пищевода, получено не было, и пациентка вернулась к привычному питанию (рис. 8).

Обсуждение

Зачастую диагноз хондрорадионекроза является диагнозом исключения, и клинически дифференцировать хондрорадионекроз от рецидива опухоли в гортани довольно сложно. Рецидивирующий папилломатоз гортани считается у взрослых облигатным предраком, но в научной литературе описаны лишь единичные случаи малигнизации [6], ее частота составляет менее 1 % [7]. Тем не менее мы не могли исключить подобную возможность, что обусловило выбор ларингэктомии. В большинстве же случаев хондрорадионекроза (I, II, III стадии по Chandler) достаточно консервативной терапии — сочетание антимикробных препаратов с гипербарической оксигенацией позволяет добиться хорошего эффекта [8]. В описанном наблюдении пациентка на протяжении длительного времени дышала через трахеоларингостому и носила трахеостомическую трубку. Постоянная травматизация органа и инфицирование, в том числе вирусом папилломы человека, также способствовали возникновению некротического процесса в гортани. Мы квалифицировали это как IV стадию хондрорадионекроза по Chandler, что является показанием к проведению ларингэктомии.

Еще одной особенностью нашего случая было возникновение опухоли в шейном отделе пищевода на фоне рубцового стеноза гортани и опухоли в щитовидной железе, которые нами были расценены как радиоиндуцированные опухоли. В научной литературе хорошо известны случаи возникновения рака щитовидной железы спустя годы после лучевого воздействия [9]. Предположительно, персистенция вируса папилломы человека вызвала процесс малигнизации в пищеводе, что является одним из доказанных факторов риска [10].

Заключение

Описанный нами случай представляет клинический интерес в связи со следующими факторами: позднее начало клинических проявлений хондрорадионекроза гортани (спустя 63 года после лучевой терапии) и возникновение сразу 2 радиоиндуцированных опухолей — в пищеводе и в щитовидной железе.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Stell P.M., Morrison M.D. Radiation necrosis of the larynx: etiology and management. Arch Otolaryngol 1973;98(2): 111–3. DOI: 10.1001/archotol.1973.00780020117011.
2. Halkud R., Shenoy A.M., Naik S.M. et al. Chondroradionecrosis of larynx a delayed complication of radiotherapy: management and review of literature. Indian J Surg Oncol 2014;5(2):128–33. DOI: 10.1007/s13193-014-0315-6. PMID: 25114466.
3. Robson F.C., Dawes J.D.K. A case of perichondritis and necrosis of laryngeal cartilage 25 years after treatment with radium. J Laryngol Otol 1961;75(11):997–8. DOI: 10.1017/s0022215100058795.
4. Fitzgerald P.J., Koch R.J. Delayed radionecrosis of the larynx. Am J Otolaryngol 1999;20(4):245–9. DOI: 10.1016/S0196-0709(99)90008-X. PMID: 10442778.
5. Larson D., Derkay C. Epidemiology of recurrent respiratory papillomatosis. APMIS 2010;118(6–7):450–4. DOI: 10.1111/j.1600-0463.2010.02619.x. PMID: 20553527.
6. Rady P., Schnadig V., Weiss R. et al. Malignant transformation of recurrent respiratory papillomatosis associated with integrated human papillomavirus type 11

- DNA and mutation of p53. Laryngoscope 1998;108(5):735–40. DOI: 10.1097/00005537-199805000-00021. PMID: 9591556.
7. Goon P., Sonnex C., Jani P. et al. Recurrent respiratory papillomatosis: an overview of current thinking and treatment. Eur Arch Otorhinolaryngol 2008;265(2):147–51. DOI: 10.1007/s00405-007-0546-z. PMID: 18046565.
8. Roh J.L. Chondroradionecrosis of the larynx: diagnostic and therapeutic measures for saving the organ from radiotherapy sequelae. Clin Exp Otorhinolaryngol 2009;2(3):115–9. DOI: 10.3342/ceo.2009.2.3.115. PMID: 19784402.
9. Veiga L.H., Holmberg E., Anderson H. et al. Thyroid cancer after childhood exposure to external radiation: an updated pooled analysis of 12 studies. Radiat Res 2016;185(5):473–84. DOI: 10.1667/RR14213.1. PMID: 27128740.
10. Wang J., Zhao L., Yan H. et al. A meta-analysis and systematic review on the association between human papillomavirus (types 16 and 18) infection and esophageal cancer worldwide. PLoS One 2016;11(7):e0159140. DOI: 10.1371/journal.pone.0159140. PMID: 27409078.

Вклад авторов

М.Г. Костова: обзор публикаций по теме статьи, анализ полученных данных, написание текста статьи;
А.В. Карпенко: получение данных для анализа, анализ полученных данных;
Р.Р. Сибгатуллин: получение данных для анализа.

Authors' contributions

M.G. Kostova: reviewing of publications of the article's theme, analysis of the obtained data, article writing;
A.V. Karpenko: obtaining data for analysis, analysis of the obtained data;
R.R. Sibgatullin: obtaining data for analysis.

ORCID авторов

М.Г. Костова: <https://orcid.org/0000-0003-4597-184X>
А.В. Карпенко: <https://orcid.org/0000-0002-4756-1310>
Р.Р. Сибгатуллин: <https://orcid.org/0000-0003-3219-4420>

ORCID of authors

M.G. Kostova: <https://orcid.org/0000-0003-4597-184X>
A.V. Karpenko: <https://orcid.org/0000-0002-4756-1310>
R.R. Sibgatullin: <https://orcid.org/0000-0003-3219-4420>

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. Пациент подписал информированное согласие на публикацию своих данных.

Informed consent. The patient gave written informed consent to the publication of his data.

Статья поступила: 07.02.2018. **Принята к публикации:** 23.03.2018

Article received: 07.02.2018. **Accepted for publication:** 23.03.2018