

Хондросаркома трахеи: случай успешного хирургического лечения

З.А.-Г. Раджабова¹, М.А. Котов¹, А.С. Митрофанов¹, О.И. Пономарева¹, М.А. Раджабова², Е.В. Левченко¹

¹ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр онкологии им. Н.Н. Петрова» Минздрава России; Россия, 197758 Санкт-Петербург, пос. Песочный, ул. Ленинградская, 68;

²ФГБВОУ ВО «Военно-медицинская академия им. С.М. Кирова» Минобороны России; Россия, 194044 Санкт-Петербург, ул. Академика Лебедева, 6

Контакты: Замира Ахмед-Гаджиевна Раджабова radzam@mail.ru

Цель исследования — представить клинический случай очень редкой злокачественной опухоли — хондросаркомы трахеи. В англоязычной медицинской литературе описано всего 18 случаев этого заболевания.

Материалы и методы. Мужчина, 74 лет, обратился за медицинской помощью к оториноларингологу в августе 2011 г. в связи с осиплостью голоса, наблюдавшейся в течение 3 лет и постепенно усиливавшейся. Диагностирована миксоидная хондросаркома.

Результаты. В сентябре 2011 г. проведена тиреоидэктомия с циркулярной резекцией трахеи на уровне 2-го кольца и наложением трахеального анастомоза. Объем операции обусловлен наличием в правой доле щитовидной железы узлового новообразования с инвазией в перстневидный хрящ гортани и 1-е кольцо трахеи. С ноября по декабрь 2011 г. пациент проходил курс адъювантной дистанционной конформной лучевой терапии в суммарной дозе 50 Гр в режиме 5/2 с разовой дозой 2 Гр. Безрецидивный период длился 3 года 9 мес. В сентябре 2015 г. в проекции правой пластинки щитовидного хряща гортани выявлено узловое новообразование диаметром 24 мм с экзофитным компонентом, расцененное как рецидив хондросаркомы. В мае 2016 г. выполнена ларингэктомия. Крайя резекции были без признаков опухолевого роста (R0). На данный момент длительность ремиссии составляет 2 года 9 мес.

Заключение. Клинический случай демонстрирует успешное комбинированное лечение пациента с хондросаркомой трахеи с длительной ремиссией после радикального лечения рецидива.

Ключевые слова: хондросаркома трахеи, опухоли трахеи, лучевая терапия, ларингэктомия, рецидив, ремиссия

Для цитирования: Раджабова З.А.-Г., Котов М.А., Митрофанов А.С. и др. Хондросаркома трахеи: случай успешного хирургического лечения. Опухоли головы и шеи 2019;9(2):95–8.

DOI: 10.17650/2222-1468-2019-9-2-95-98

Chondrosarcoma of trachea: case report of successful surgical treatment of local recurrence

Z.A.-G. Radzhabova¹, M.A. Kotov¹, A.S. Mitrophanov¹, O.I. Ponomareva¹, M.A. Radzhabova², E.V. Levchenko¹

¹N.N. Petrov National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia; 68 Leningradskaya St., Pesochnyy Settlement, Saint Petersburg 197758, Russia;

²S.M. Kirov Military Medical Academy, Ministry of Defense of Russia; 6 Akademika Lebedeva St., Saint Petersburg 194044, Russia

The study objective is to report a case of tracheal chondrosarcoma, which is a very rare malignant tumor. Only 18 cases have been described so far in English medical literature.

Materials and methods. A 74-year-old male patient visited an otorhinolaryngologist in August 2011 with complaints of hoarseness of voice, which have been gradually increasing during the last 3 years. The patient was diagnosed with myxoid chondrosarcoma.

Results. In September 2011, the patient underwent thyroidectomy and circular resection of the trachea at the level of its second ring with the creation of a tracheal anastomosis. This volume of surgery was determined by the presence a thyroid nodule in the right thyroid lobe, which invaded the cricoid cartilage and the first ring of the trachea. In November-December 2011, the patient underwent a course of adjuvant external beam radiotherapy with a total dose of 50 Gy delivered in 2.0 Gy fractions, 5 days per week. No cancer recurrence had been observed during 3 years and 9 months of follow up. In September 2015, the patients was found to have a 24-mm thyroid nodule with an exophytic component in the right thyroid cartilage plate. This finding was considered as recurrent chondrosarcoma. In May 2016, the patient had laryngectomy. We performed margin-negative (R0) resection. The patient has now been in remission for 2 years and 9 months.

Conclusion. We demonstrate successful treatment of a patient with tracheal chondrosarcoma with a long-term remission after surgery for recurrent tumor.

Key words: tracheal chondrosarcoma, tracheal tumors, radiotherapy, laryngectomy, recurrence, remission

For citation: Radzhabova Z.A.-G., Kotov M.A., Mitrophanov A.S. et al. Chondrosarcoma of trachea: case report of successful surgical treatment of local recurrence. Opuholi golovy i shei = Head and Neck Tumors 2019;9(2):95–8.

Введение

Первичные злокачественные новообразования трахеи составляют около 0,2 % от общего числа случаев злокачественных опухолей дыхательного тракта. В мире ежегодно регистрируется около 2,6 млн новых больных. Наиболее частые гистологические варианты — плоскоклеточный рак и аденокистозная карцинома (от 60 до 90 % всех опухолей трахеи).

Хондросаркома трахеи встречается чрезвычайно редко. В англоязычной медицинской литературе с 1959 по 2017 г. описано всего 18 случаев хондросаркомы данной локализации [1–15]. Возраст развития заболевания в этих наблюдениях варьировал от 32 до 87 лет (в среднем 66 лет). У мужчин опухоль встречалась в 8 раз чаще, чем у женщин (в 92 % случаев) [1–15].

Хондросаркома характеризуется медленным экстралюминальным ростом из хрящевых колец трахеи, в 70 % случаев — в дистальных отделах. Симптомы появляются при заполнении опухолью >75 % просвета трахеи. Срок от момента появления симптомов до постановки диагноза может составлять от 1 до 72 мес, в среднем 17,4 мес.

Мы представляем клинический случай хондросаркомы трахеи, лечение которой включало хирургическое вмешательство и адъювантную лучевую терапию.

Клиническое наблюдение

Мужчина, 74 лет, европейского происхождения, впервые обратился за медицинской помощью к оториноларингологу в августе 2011 г. в связи с осиплостью голоса, беспокоившей его в течение 3 лет и постепенно усиливавшейся.

При непрямой ларингоскопии выявлена асимметрия голосовой щели и разрыв правой половины гортани, а также выбухание стенки трахеи на границе 1-го кольца и перстневидного хряща гортани, а при физикальном исследовании — увеличение щитовидной железы за счет правой доли. По данным ультразвукового исследования в режиме серой шкалы установлено, что правая доля щитовидной железы полностью замещена гипоэхогенным узловым новообразованием неправильной формы с неравномерным кровотоком. Объем образования — 6 см³. В структуре образования визуализированы перегородки. Цитологическая картина при исследовании материала, полученного методом тонкоигльной аспирационной биопсии, соответствовала миксоидной хондросаркоме.

В сентябре 2011 г. выполнена тиреоидэктомия с циркулярной резекцией трахеи на уровне 2-го кольца и наложением трахеального анастомоза. Объем операции обусловлен наличием в правой доле щитовидной железы узлового новообразования каменистой плотности с инвазией в перстневидный хрящ гортани и 1-е кольцо трахеи. Патоморфологическое исследование операционного материала верифицировало диагноз умеренно-дифференци-

рованной хондросаркомы трахеи. Края резекции без признаков опухоли (R0).

С ноября по декабрь 2011 г. пациент проходил курс адъювантной дистанционной конформной лучевой терапии на линейном ускорителе Novalis Tx (Varian Medical Systems, США). Облучали ложе опухоли и регионарный лимфатический коллектор с обеих сторон в режиме 5/2 с разовой дозой 2 Гр; суммарная доза 50 Гр.

Дальнейшее динамическое наблюдение предполагало контрольные обследования с частотой 1 раз в 3 мес в течение 2012 г. и 1 раз в год в период с 2013 по 2015 г. Они включали ультразвуковое исследование мягких тканей и лимфатических узлов шеи, магнитно-резонансную томографию (МРТ) мягких тканей шеи с внутривенным контрастированием, фибробронхоскопию, компьютерную томографию органов грудной полости с внутривенным

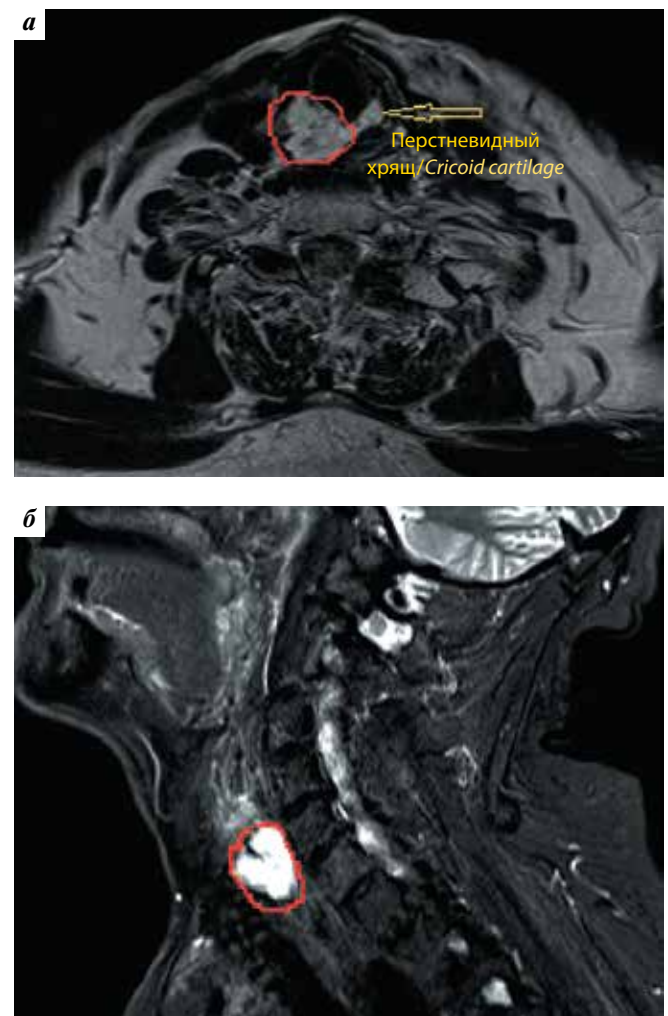


Рис. 1. Магнитно-резонансная томография мягких тканей шеи (21.03.2016) в T2-режиме. Узловое новообразование диаметром 27 мм с экзофитным компонентом (красный контур): а — аксиальная проекция; б — сагиттальная проекция

Fig. 1. T2-weighted magnetic resonance images of the soft tissues of the neck (21.03.2016). A 27-mm thyroid nodule with an exophytic component (red outline): а — axial image; б — sagittal image

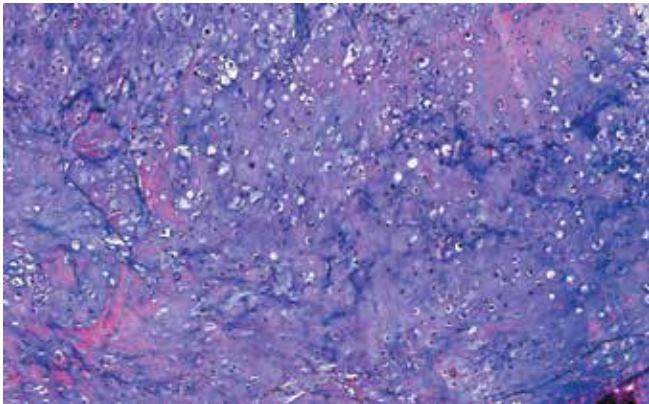


Рис. 2. Микропрепарат рецидивной хондросаркомы трахеи. Окраска гематоксилином и эозином. $\times 5$

Fig. 2. Histological section of recurrent tracheal chondrosarcoma. Hematoxylin and eosin staining, $\times 5$

контрастированием. Пациент также находился под наблюдением эндокринолога в связи с послеоперационным гипотиреозом.

В сентябре 2015 г. при очередном контрольном обследовании пациента по данным МРТ мягких тканей шеи с внутривенным контрастированием в проекции правой пластинки щитовидного хряща гортани обнаружено узловое новообразование диаметром 24 мм с экзофитным компонентом размером 3 мм, расцененное как рецидив хондросаркомы. Новообразование оттесняло влево шейный отдел пищевода; отмечалось выбухание левой голосовой складки. Клиническим симптомом было усиление осиплости голоса.

В марте 2016 г. при контрольной МРТ выявлено увеличение новообразования до 27 мм, а экзофитного компонента до 7 мм (рис. 1). Появилась одышка смешанного характера.

17 мая 2016 г. выполнена ларингэктомия. Патоморфологическое исследование операционного материала подтвердило рецидив умеренно-дифференцированной хондросаркомы (рис. 2). Края резекции без признаков опухоли (R0).

В дальнейшем пациент находился под динамическим наблюдением: в течение 2016 г. интервал между осмотрами составлял 3 мес, в течение 2017 г. — 6 мес. Проводили ультразвуковое исследование мягких тканей и лимфатических узлов шеи, МРТ мягких тканей шеи с внутривенным контрастированием (рис. 3), фибробронхоскопию, компьютерную томографию органов грудной полости с внутривенным контрастированием.

На момент написания статьи (март 2018 г.) признаки рецидива опухоли отсутствуют.

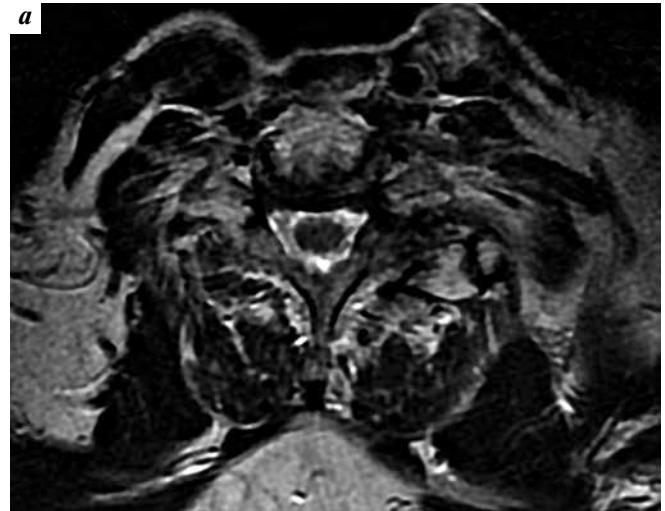


Рис. 3. Магнитно-резонансная томография мягких тканей шеи (22.09.2017) в T2-режиме. Признаки рецидива отсутствуют: а — аксиальная проекция; б — сагиттальная проекция

Fig. 3. T2-weighted magnetic resonance images of the soft tissues of the neck (22.09.2017). No signs of recurrence: а — axial image; б — sagittal image

Заключение

Представленный клинический случай демонстрирует успешное лечение пациента с такой редкой патологией, как хондросаркома трахеи. Лечение было комбинированным и включало оперативное вмешательство и последующую лучевую терапию. С момента окончания первичного лечения до прогрессирования опухоли прошло 3 года 9 мес. Длительность ремиссии после радикального лечения рецидива составляет 2 года 9 мес.

Л И Т Е Р А Т У Р А / R E F E R E N C E S

1. Daniels A.C., Conner G.H., Straus F.H. Primary chondrosarcoma of the tracheo-bronchial tree. Report of a unique case and brief review. Arch Pathol 1967;84(6):615–24.
2. Fallahnejad M., Harrell D., Tucker J. et al. Chondrosarcoma of the trachea. Report of a case and five-year follow-up. J Thorac Cardiovasc Surg 1973;65(2):210–3.
3. Weber A.L., Shortleeve M., Goodman M. et al. Cartilaginous tumors of the larynx and trachea. Radiol Clin North Am 1978;16(2):261–71.
4. Slasky B.S., Hardesty R.L., Wilson S. Tracheal chondrosarcoma with an overview of other tumors of the trachea. J Comput Tomogr 1985;9(3):225–31. DOI: 10.1016/0149-936X(85)90066-9.
5. Arévalo M., Ordi J., Renedo G. et al. Chondrosarcoma of the trachea: report of a case. Respiration 1986;49(2):147–51. DOI: 10.1159/000194872.
6. Matsuo T., Kinoshita S., Iwasaki K. et al. Chondrosarcoma of the trachea: a case report and literature review. Acta Cytol 1988;32(6):908–12.
7. Salminen U.-S., Halttunen P., Taskinen E., Mattila S. Recurrence and malignant transformation of endotracheal chondroma. Ann Thorac Surg 1990;49(5):830–2. DOI: 10.1016/0003-4975(90)90039-9.
8. Leach K.R., Martinez F.J., Morelock J.W. et al. Dyspnea and tracheal mass in an elderly man. Chest 1994;105(5):1555–6. DOI: 10.1378/chest.105.5.1555.
9. Farrell M.L., Gluckman J.L., Biddinger P. Tracheal chondrosarcoma: a case report. Head Neck 1998;20(6):568–572. DOI: 10.1002/(SICI)1097-0347(199809)20:6<568::AID-HED13>3.0.CO;2-D.
10. Kiriya M., Masaoka A., Yamakawa Y. et al. Chondrosarcoma originating from the trachea. Ann Thorac Surg 1997;63(6):1772–3. DOI: 10.1016/S0003-4975(97)00331-7.
11. Maish M., Vaporciyan A.A. Chondrosarcoma arising in the trachea: a case report and review of the literature. J Thorac Cardiovasc Surg 2003;126(6):2077–80. DOI: 10.1016/S0022-5223(03)00949-8.
12. Umez H., Tamura M., Kobayashi S. et al. Tracheal chondrosarcoma. Gen Thorac Cardiovasc Surg 2008;56(4):199–202. DOI: 10.1007/s11748-007-0218-3.
13. Wagnetz U., Patsios D., Darling G. et al. Tracheal chondrosarcoma – a rare complication in Maffucci syndrome. Br J Radiol 2009;82(981):e178–81. DOI: 10.1259/bjr/17386896.
14. Mendonça V., Jorge M., Monteiro-Grillo I. et al. Tracheal chondrosarcoma. Clin Translation Oncol 2010;12(8):576–80. DOI: 10.1007/s12094-010-0557-x.
15. De Almeida J.R., Pagedar N.A., Keshavjee S., Gilbert R. Chondrosarcoma of the trachea in a patient with Maffucci syndrome. J Otolaryngol Head Neck Surg 2010;39(2):E12–5. DOI: 10.2310/7070.2010.090194.

Вклад авторов

З.А.-Г. Раджабова: выполнение операций, курация пациента, обзор публикаций по теме статьи;
 М.А. Котов: курация пациента, обзор публикаций по теме статьи, написание текста статьи;
 А.С. Митрофанов: обзор публикаций по теме статьи;
 О.И. Пономарева: описание изображений, полученных при магнитно-резонансной томографии;
 М.А. Раджабова: обзор публикаций по теме статьи;
 Е.В. Левченко: выполнение операций, научное редактирование текста статьи.

Authors' contributions

Z. A.-G. Radzhabova: surgical treatment, supervision of the patient, reviewing of publications of the article's theme;
 M. A. Kotov: supervision of the patient, reviewing of publications of the article's theme, article writing;
 A. S. Mitrophanov: reviewing of publications of the article's theme;
 O. I. Ponomareva: describing the magnetic resonance images;
 M. A. Radzhabova: reviewing of publications of the article's theme;
 E. V. Levchenko: surgical treatment, scientific editing of the article.

ORCID авторов/ORCID of authors

З.А.-Г. Раджабова/Z. A.-G. Radzhabova: <https://orcid.org/0000-0002-6895-0497>
 М.А. Котов/M. A. Kotov: <https://orcid.org/0000-0002-2586-1240>
 А.С. Митрофанов/A. S. Mitrophanov: <https://orcid.org/0000-0001-7490-4019>
 О.И. Пономарева/O. I. Ponomareva: <https://orcid.org/0000-0002-7004-9630>
 М.А. Раджабова/M. A. Radzhabova: <https://orcid.org/0000-0001-7679-129X>
 Е.В. Левченко/E. V. Levchenko: <https://orcid.org/0000-0003-3837-2515>

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 for the publication of his data.

Статья поступила: 18.03.2019. Принята к публикации: 29.04.2019.

Article received: 18.03.2019. Accepted for publication: 29.04.2019.