doi: 10.18484/2305-0047.2018.1.103

M.Д. POMAHOB ¹, E.M. КИРЕЕВА ^{1,2}



ЛЕГОЧНЫЙ ЭНДОМЕТРИОЗ: ЛЕЧЕБНАЯ ТАКТИКА

Национальный исследовательский Мордовский государственный университет имени Н.П. Огарёва 1 , Республиканская клиническая больница № 4 2 , г. Саранск,

Российская Федерация

В статье представлены два клинических наблюдения редко встречающейся патологии — легочного эндометриоза, осложненного кровохарканьем. Пациентка 34 лет отмечала периодическое кровохарканье во время menses с 1969 года. В возрасте 19 лет ей была выполнена экстренная операция по поводу легочного кровотечения, которое было остановлено перевязкой корня промежуточного бронха лигатурой из-за возникшей фибрилляции желудочков и нестабильной гемодинамики. В последующем периодическое кровохарканье продолжалось, но больная отказывалась от бронхологического обследования и биопсии. 27.10.1983 г. выполнена правосторонняя пневмонэктомия, во время которой обнаружены пневмоцирроз нижней и средней долей и очаги эндометриоидной ткани в верхней доле правого легкого. При диспансерном наблюдении в течение 10 лет кровохарканье не наблюдалось, патологии со стороны трахеи, бронхов и левого легкого не обнаружено.

Второе наблюдение демонстрирует эффективность 6-месячного непрерывного курса лечения легочного эндометриоза в сочетании с аденомиозом с применением диеногеста у пациентки 25 лет, который сопровождался не только подавлением активности очагов эндометриоза, но и исчезновением клинико-инструментальных проявлений как в матке, так и в легком. В данном наблюдении длительность заболевания до лечения была 3 месяца; у обеих пациенток был неблагоприятный гинекологический анамнез.

Ключевые слова: экстрагенитальный эндометриоз, легочный эндометриоз, кровохарканье, аденомиоз, диеногест, диагностика, лечебная тактика

The article presents two clinical observations of a rare pathology, pulmonary endometriosis, complicated by hemoptysis. A 34-year-old female patient has had periodic hemoptysis during menses since 1969. At the age of 19 she underwent an emergency operation for pulmonary hemorrhage, which was stopped by the ligation of the intermediate bronchus root with the ligature due to ventricular fibrillation and unstable hemodynamics. Subsequently, periodic hemoptysis continued, but the patient refused to undergo bronchial examination and biopsy. 27.10.1983 a right-sided pneumonectomy was performed, during which the pneumocirrhosis of the lower and middle lobes and foci of the endometrioid tissue in the upper lobe of the right lung were observed. During the follow-up for 10 years, hemoptysis has not been observed, pathology from the side of the trachea bronchial tubes and left lung has not been detected.

The second observation demonstrates the effectiveness of a 6-month continuous course of treatment of pulmonary endometriosis in combination with adenomyosis with the use of dienogest in a 25-year-old patient, which was accompanied not only by the activity suppression of the endometriosis foci, but also by the disappearance of clinical and instrumental manifestations both in the uterus, and in the lung. In this observation, the duration of the disease before treatment was 3 months; both patients had an unfavorable gynecological anamnesis.

Keywords: extragenital endometriosis, pulmonary endometriosis, hemoptysis, adenomyosis, dienogest, diagnostics, treatment tactics

Novosti Khirurgii. 2018 Jan-Feb; Vol 26 (1): 103-108 Pulmonary Endometriosis: Treatment Tactics M.D. Romanov, E.M. Kireeva

Введение

Экстрагенитальный эндометриоз встречается в 6-8% среди всех случаев этого заболевания, к таким формам относится и торакальный эндометриоз, который проявляется не только катамениальным рецидивирующим спонтанным пневмотораксом, гемотораксом [1], но и образованием эндометриоидных очагов в легочной ткани и бронхах [2, 3, 4]. Легочный эндометриоз встречается очень редко, при этом верификация диагноза возможна только после гистологических и иммуногистохимических

исследований операционного материала [5]. В то же время довольно характерные клиникоинструментальные признаки бронхолегочного эндометриоза в сочетании с аденомиозом при исключении другой патологии органа дыхания позволяют установить диагноз и определить тактику ведения пациентов.

В зависимости от выраженности клинических проявлений и локального статуса бронхолегочного эндометриоза, возраста и социального положения женщины лечебная тактика диверсифицируется по двум вариантам: консервативное лечение, основу

которого составляет гормональная терапия, направленная на снижение уровня эстрогенов [6, 7] и хирургическое удаление анатомического субстрата, в том числе источника повторных кровотечений? и (или) катамениального пневмоторакса [1]. Однако активная хирургическая тактика не всегда является целесообразной или приемлемой для пациентки, она оправдана лишь при рецидивах легочного кровотечения, а также при возможности выполнения радикальной операции. В Федеральных клинических рекомендациях по ведению пациентов с эндометриозом [6] при отсутствии четких показаний к хирургическому лечению, либо при отказе от операции предусмотрено назначение гормональной терапии ex juvantibus. Для иллюстрации выбора лечебной тактики приводим два клинических наблюдения.

Цель. Обратить внимание торакальных хирургов и акушеров-гинекологов на редкую патологию — легочный эндометриоз — при выявлении причин кровохарканья и выборе лечебной тактики.

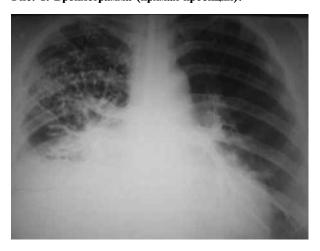
Клинический случай 1

Пациентка? 34 лет, поступила в отделение торакальной хирургии 18.10.1983 г. с жалобами на кашель с периодическим кровохарканьем во время menses, общую слабость, одышку при физической нагрузке, кровохарканье до 50 мл в сутки, чувство «прилива крови и потепления» в правой половине грудной клетки, сопровождающееся субфебрильной температурой. Больной себя считает с 17-летнего возраста, когда была оперирована по поводу «шоколадной» кисты правого яичника, после чего отмечала появление кровохарканья во время menses. При обследовании был установлен хронический бронхит с эпизодами кровохарканья, интенсивность которых постепенно нарастала. В возрасте 19 лет была госпитализирована по поводу легочного кровотечения в онкологическое отделение Республиканской клинической больницы. При ригидной бронхоскопии алая кровь поступала из нижнедолевого бронха, источник кровотечения не был установлен. При экстренной операции во время пневмолиза кровотечение усилилось, появилась фибрилляция желудочков, ритм сердца был восстановлен дефибриллятором. Из-за нестабильности гемодинамических показателей и неполного пневмолиза, кровотечение было остановлено путем наложения лигатуры на корень нижней доли правого легкого. Эпизоды кровохарканья во время месячных возобновились через полгода, неоднократно лечилась в стационаре с периодическими обострениями бронхопневмоний. От неоднократных предложений бронхологического обследования и хирургического лечения больная отказывалась. Гинекологический анамнез: менструальный цикл 25 дней, альгодисменорея с эпизодами гиперменореи. В анамнезе три беременности, завершившиеся их невынашиванием и выполнением медицинских абортов.

При перкуссии над верхней долей правого легкого выявлен коробочный звук, при аускультации выслушивались ослабленное жестковатое дыхание и единичные сухие хрипы. ЧД - 24 в мин, одышка смешанного характера. При спирографии зафиксированы вентиляционные нарушения II степени с преобладанием обтурационного характера. На рентгенограмме грудной клетки правое легочное поле сужено, корень легкого бесструктурен, легочный рисунок усилен, деформирован, паракостально и над диафрагмой плевральные наложения, диафрагма расположена на уровне 4 межреберья. При бронхографии правый главный бронх деформирован, развернут кверху, контрастное вещество заполняет бронхи верхней доли, выраженная картина деформативного бронхита, частично контрастирован деформированный и суженный промежуточный бронх; контрастное вещество заполнило также бронхи нижней доли и частично бронх верхней доли левого легкого

При ригидной бронхоскопии было установлено: карина развернута, несколько расширена, в бронхах левого легкого патологии не обнаружено. В устье верхнедолевого бронха и в суженном обтурированном промежуточном бронхе обнаружены мозаичные участки отечной гиперемированной слизистой оболочки с очагами кровоизлияний. В бронхиальном секрете при гистологическом исследовании обнаружены обрывки эндометриоидной ткани.

Рис. 1. Бронхограмма (прямая проекция).



27.10.1983 г. выполнена правосторонняя задне-боковая торакотомия (М.Д. Романов), во время которой обнаружен выраженный спаечный процесс в плевральной полости, нижняя и средняя доли легкого безвоздушны, темновишневого цвета, верхняя доля эмфизематозно расширена, в ней пальпируются очаги небольшой плотности. Произведена правосторонняя пневмонэктомия. При гистологическом исследовании легочной ткани обнаружены очаги эндометриального эпителия, расположенного на цитогенной строме. При диспансерном наблюдении в течение 10 лет больная жалоб со стороны органов грудной клетки не предъявляла, кровохарканье не наблюдалось. Признаков патологии со стороны трахеи и бронхов левого легкого не обнаружено.

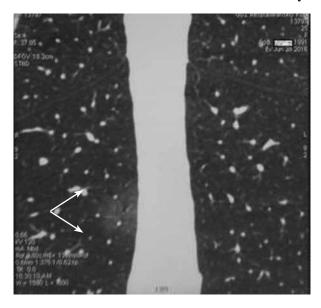
Клинический случай 2

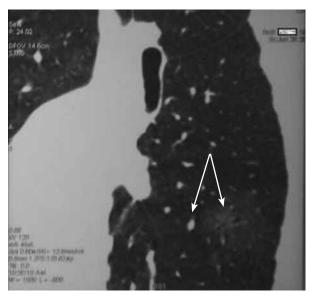
Пациентка, 25 лет, поступила в отделение торакальной хирургии 11.07.2016 г. с жалобами на кровохарканье до 3 мл в сутки во время месячных, чувство жжения в грудной клетке, общую слабость, повышение температуры тела до 37,2°C. Больной себя считала в течение 3 месяцев, когда стали беспокоить периодически возникающие (каждый месяц в течение 4-5 дней) кашель с отделением алой крови, чувство жжения в грудной клетке, общая слабость и повышение температуры тела, боли в области малого таза. Гинекологический анамнез: беременность 1 (2013 г.), роды разрешены путем кесарева сечения. Менструальный цикл 30 дней, в течение последнего года — альгодисменорея. Дата начала последней менструации — 16.07.16 г. Наследственный анамнез: у матери — аденомиоз матки.

Первый эпизод кровохарканья был 17 мая, второй – 18 июня, третий (настоящий) – 18 июля 2016 г. При откашливании выделялась алая кровь без примесей, при этом пациентка чувствовала «заливание» бронхов жидкостью. Кровохарканье начиналось на второй или третий дни от начала цикла и продолжалось в течение 3 дней. Дважды была госпитализирована по поводу кровохарканья, однако диагноз эндометриоза легких не был установлен. На компьютерной томограмме (КТ) 18.06.16 г. выявлены участки инфильтрации в нижней доле правого легкого. При фибробронхоскопии (ФБС) от 20.06.16 г.: слизистая бронхов правой стороны отечная, инфильтрирована, в просвете бронхов имелось небольшое количество геморрагических сгустков. На KT от 28.06.16 г.: в S8 правого легкого паракостально определялся участок инфильтрации легочной ткани по типу «матового стекла» клиновидной формы, здесь же были видны расширенные просветы бронхов (рис. 2).

При поступлении над нижней долей правого легкого выслушивалось ослабленное везикулярное дыхание, под нижним углом лопатки — влажные мелкопузырчатые хрипы. При КТ за 5 дней до начала цикла (11.07.16 г.) очаговых и инфильтративных изменений в легких не выявлено; на ЭхоКГ — давление заклинивания легочной артерии — 21 мм рт. ст. ФБС от 18.07.16 г.: в правом нижнедолевом бронхе имелись прожилки светлой крови. На шпоре S6 правого бронха обнаружено красное пятно овальной формы, размером до 2 мм, покрытое

Рис. 2. Компьютерная томограмма органов грудной клетки. Стрелками указана зона инфильтрации легочной ткани по типу «матового стекла».







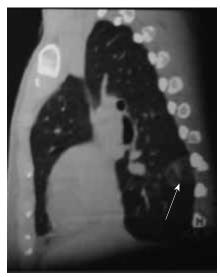


Рис. 3. Компьютерная томограмма органов грудной клетки. Стрелками указано облаковидное снижение прозрачности легочной ткани.

налетом светлой крови. При биопсии образования бронха обнаружен цилиндрический эпителий с признаками пролиферации; в промывных водах бронхов выявлены лейкоциты, эритроциты, мелкие обрывки эндометриоидной ткани с цитогенной стромой. На КТ (19.07.16 г.) в проекции S6 и S7 правого легкого отмечалось малоинтенсивное облаковидное снижение прозрачности легочной ткани, внутри которого прослеживался просвет расширенного бронха (рис. 3).

В анализе крови от 19.07.16 г.: гемоглобин — 120 г/л, лейкоциты — 3.8×10^9 /л; нейтрофилы — 33%, лимфоциты — 59%, моноциты — 8%, СОЭ — 21 мм/ч, эритроциты — 4.1×10^{12} /л, тромбоциты 180×10^9 /л, гематокрит — 36%. Протромбиновый индекс — 100%, фибриноген — 4000 мг/л. При многократном исследовании мокроты атипические клетки и микобактерии туберкулеза не были обнаружены.

При ультразвуковом исследовании матки в толще передней ее стенки обнаружены гиперэхогенные фокусы до 1,3 мм. Магнитнорезонансная томография (МРТ) от 25.07.16 г.: матка в положении антеверсио, ее размеры: 4,1×4,8×9,2 см. Полость матки расширена до 0,5 см, не деформирована. Эндометрий однородный. Переходная зона выражена отчетливо, расширена до 1,1 см. В толще матки определяются множественные гипоинтенсивные очаги по Т2—ВИ, изоинтенсивные по Т1—ВИ с неровными нечеткими контурами, размером до 0,5 см в диаметре (рис. 4). Небольшое количество свободной жидкости в Дугласовом пространстве.

На консилиуме с участием гинеколога установлен диагноз: «Аденомиоз. Эндометриоз нижней доли правого легкого. Рецидивирующее кровохарканье». Больная с первого дня очередных menses (13.08.16 г.) в течение 6 месяцев

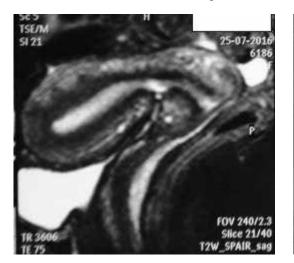
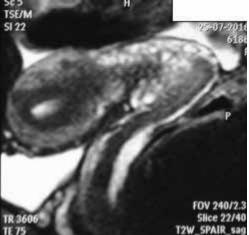


Рис. 4. Магнитно-резонансная томограмма органов малого таза.



непрерывно принимала пероральный прогестаген — микронизированный диеногест в дозе 2 мг ежедневно. Обследована 13.03.2017 г. (3-й день menses): жалоб не предъявляет, кашель, повышение температуры тела не отмечает, кровохарканье не повторялось. При ФБС и КТ легких патологии не выявлено; на МРТ органов малого таза очагов неоднородности МР-сигнала в миометрии не обнаружено, зафиксирована четкая дифференциация слоев матки.

Обсуждение

Первое наблюдение демонстрирует сложности диагностики редко встречающегося бронхолегочного эндометриоза, осложненного легочным кровотечением, которое не позволило провести полноценное обследование (в том числе морфологическую верификацию) пациентки во время первой госпитализации. В качестве альтернативы для остановки легочного кровотечения можно было использовать окклюзию «кровоточащего бронха» поролоновой губкой, пропитанной 30% раствором йодолипола [8], а после остановки кровотечения оценить характер и распространенность субстрата, вызвавшего кровотечение, что, возможно, позволило бы сохранить легкое или уменьшить объем его резекции. Следует также отметить формирование негативного отношения пациентки к бронхологическому обследованию и хирургическому лечению из-за тяжелого интраоперационного осложнения, возникшего во время первой операции.

Второе наблюдение демонстрирует эффективность 6-месячного курса гормональной терапии с применением диеногеста для лечения легочного эндометриоза в сочетании с аденомиозом. Гипоэстрогенный, антипролиферативный и противовоспалительные эффекты диеногеста [7, 9] реализовались не только в подавлении активности очагов эндометриоза, но и в исчезновении клинико-инструментальных проявлений как в матке, так и в легком. Прекращение рецидивирующего кровохарканья и тазовой боли оказало благотворное влияние на психоэмоциональный статус пациентки: исчезли депрессия, тревожное ожидание связанных с менструацией проявлений легочного эндометриоза. Кроме того, следует отметить, что в данном случае наблюдалась миграция очагов инфильтрации в нижней доле правого легкого (КТ 28.06.2016 г. и 19.07. 2016 г.), что могло бы осложнить принятие решения об объеме резекции легкого в экстренной ситуации при возникновении легочного кровотечения.

Заключение

При выборе лечебной тактики у пациенток с легочным эндометриозом с наличием множественных очагов поражения при минимальных и умеренных клинических признаках следует отдавать предпочтение длительной гормональной терапии с последующим диспансерным наблюдением торакального хирурга и акушера-гинеколога. Хирургическое лечение показано при выраженной клинической картине легочного эндометриоза с точно установленной локализацией и распространенностью патологического процесса в легком, а также в экстренных ситуациях, когда есть реальная угроза асфиксии при рецидивах легочного кровотечения.

Финансирование

Финансовой поддержки со стороны компаний-производителей лекарственных препаратов авторы не получали.

Конфликт интересов

Авторы заявляют, что конфликт интересов отсутсвует.

Согласие

От пациентов было получено согласие на публикацию описания клических случаев.

ЛИТЕРАТУРА

- 1. Воскресенский ОВ, Смоляр АН, Дамиров ММ, Галанкина ИЕ, Желев ИГ. Торакальный эндометриоз и катамениальный пневмоторакс. *Хирургия Журн им НИ Пирогова*. 2014;(10):4-9.
- 2. Пичуров АА, Оржешковский ОВ, Двораковская ИВ, Романова ЛА, Иванищак БЕ, Карельская ЕА, Петрунькин АМ, Петров АС, Атюков МА, Яблонский ПК. Внутрилегочный эндометриоз редкая патология в торакальной хирургии. Вести Хирургии им ИИ Грекова. 2014;173(1):26-29.
- 3. Chatra PS. Thoracic endometriosis: a case report. *J Radiol Case Rep.* 2012 Jan; 6(1):25-30. doi: 10.3941/jrcr.v6i1.614.
- 4. Choi SY, Kim CK, Park CB. Successful treatment of catamenial hemoptysis by video-assisted thoracoscopic surgery. *Thorac Cardiovasc Surg.* 2013 Jan;61(1):94-96. doi: 10.1055/s-0032-1330227.
- 5. Двораковская ИВ, Печенникова ВА, Ариэль БМ, Платонова ИС, Новикова ЛН, Оржешковский ОВ, Пичуров АА, Яблонский ПК. Легочный эндометриоз как одна из форм эндометриоидной болезни. *Пульмонология*. 2016;26(4):459-65. doi: 10.18093/0869-0189-2016-26-4-459-465.
- 6. Адамян ЛВ, Андреева ЕН, Аполихина ИА, Беженарь ВФ, Геворкян МА, Гус АИ, Демидов ВН, Калинина ЕА, Леваков СА, Марченко ЛА, Попов АА, Сонова ММ, Хашукоева АЗ, Чернуха ГЕ, Яроцкая ЕЛ.

Эндометриоз: диагностика, лечение и реабилитация: Федеральные клинические рекомендации по ведению больных. Москва, РФ; 2013. 65 с.

7. Schweppe KW, Rabe T, Langhardt M, Kiesel L. Endometriosis-pathogenesis, diagnosis and therapeutic options for clinical and ambulatory care. *J Reproduktionsmed Endokrinol.* 2013;10(1):102-19.

8. Романов МД, Кувакин ВИ, Косарев ЮИ. Лечебная тактика при легочных кровотечениях. *Клин Хирургия*. 1986;10:29—31.

9. Сотникова ЛС, Удут ЕН, Насырова РФ, Тонких ОС. Современная терапия эндометриоза. Опыт применения визанны. *Проблемы Репродукции*. 2012;(6):34-39.

REFERENCES

- 1. Voskresenski OV, Smoliar AN, Damirov MM, Galankina IE, Zhelev IG. Thoracic endometriosis and catamenial pneumothorax. *Khirurgiia Zhurn im NI Pirogova*. 2014;(10):4-9. (in Russ)
- 2. Pichurov AA, Orzheshkovskiy OV, Dvorakovskaya IV, Romanova LA, Ivanishchak BE, Karelskaya EA, Petrunkin AM, Petrov AS, Atyukov MA, Yablonskiy PK. Thoracic endometriosis the rare pathology in thoracic surgery. *Vestn Khirurgii im II Grekova*. 2014;173(1):26-29. (in Russ.)
- 2014;173(1):26-29. (in Russ.)
 3. Chatra PS. Thoracic endometriosis: a case report. *J Radiol Case Rep.* 2012 Jan; 6(1):25-30. doi: 10.3941/

Адрес для корреспонденции

430032, Российская Федерация, г. Саранск, ул. Ульянова, д. 32, Национальный исследовательский Мордовский государственный университет имени Н.П. Огарёва, кафедра госпитальной хирургии, тел. моб. +79279710237, e-mail: mdromanov@yandex.ru, Романов Михаил Дмитриевич

Сведения об авторах

Романов Михаил Дмитриевич, д.м.н., профессор, профессор кафедры госпитальной хирургии, Национальный исследовательский Мордовский государственный университет имени Н.П. Огарёва, г. Саранск, Российская Федерация.

https://orcid.org/0000-0002-9646-4007

Киреева Екатерина Михайловна, к.м.н., доцент кафедры госпитальной хирургии, Национальный исследовательский Мордовский государственный университет имени Н.П. Огарёва, врач-торакальный хирург, Республиканская клиническая больница № 4, г. Саранск, Российская Федерация. https://orcid.org/0000-0003-1034-167X

TT 1

Информация о статье

Поступила 17 марта 2017 г. Принята в печать 25 мая 2017 г. Доступна на сайте 5 февраля 2018 г. jrcr.v6i1.614.

- 4. Choi SY, Kim CK, Park CB. Successful treatment of catamenial hemoptysis by video-assisted thoracoscopic surgery. *Thorac Cardiovasc Surg.* 2013 Jan;61(1):94-96. doi: 10.1055/s-0032-1330227.
- 5. Dvorakovskaya IV, Pechennikova VA, Ariel' BM, Platonova IS, Novikova LN, Orzheshkovskiy OV, Pichurov AA, Yablonskiy PK. Pulmonary endometriosis as a form of endometrial disease. *Pul'monologiia*. 2016;26(4):459-65. doi: 10.18093/0869-0189-2016-26-4-459-465. (in Russ.)
- 6. Adamian LV, Andreeva EN, Apolikhina IA, Bezhenari VF, Gevorkian MA, Gus AI, Demidov VN, Kalinina EA, Levakov SA, Marchenko LA, Popov AA, Sonova MM, Khashukoeva AZ, Chernukha GE, Iarotskaia EL. Endometrioz: diagnostika, lechenie i reabilitatsiia: federal'nye klinicheskie rekomendatsii po vedeniiu bol'nykh. Moscow, RF; 2013. 65 p. (in Russ.) 7. Schweppe KW, Rabe T, Langhardt M, Kiesel L. Endometriosis-pathogenesis, diagnosis and therapeutic options for clinical and ambulatory care. *J Reproduktionsmed Endokrinol.* 2013;10(1):102-19.
- 8. Romanov MD, Kuvakin VI, Kosarev IuI. Lechebnaia taktika pri legochnykh krovotecheniiakh. *Klin Khirurgiia.* 1986;10:29–31. (in Russ.)
- 9. Sotnikova LS, Udut EV, Nasyrova RF, Tonkikh OS. Modern methods of endometriosis therapy the experience of visanne use. *Problemy Reproduktsii*. 2012;(6):34-39. (in Russ.)

Address for correspondence

430032, The Russian Federation, Saransk, Ulyanov Str., 32, National Research N.P. Ogarev Mordovia State University, Department of Hospital Surgery, Tel. mobile +79279710237, e-mail: mdromanov@yandex.ru, Romanov Mikhail D.

Information about the authors

Romanov Mikhail D., MD, Professor, Professor of the Hospital Surgery Department, National Research N.P. Ogarev Mordovia State University, Saransk, the Russian Federation.

https://orcid.org/0000-0002-9646-4007

Kireeva Ekaterina M., PhD, Associate Professor of the Hospital Surgery Department, Thoracic Surgeon, National Research N.P. Ogarev Mordovia State University, Republican Clinical Hospital № 4, Saransk, the Russian Federation.

https://orcid.org/0000-0003-1034-167X

Article history

Arrived 17 March 2017 Accepted for publication 25 May 2017 Available online 5 February 2018