

Случай врожденной незрелой тератомы головы и шеи

Г.Б. Сагоян, Д.Ю. Качанов, Н.С. Грачев, А.М. Митрофанова, Р.А. Моисеенко, И.Н. Ворожцов, Г.В. Терещенко, Т.В. Шаманская, С.Р. Варфоломеева

ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр детской гематологии, онкологии и иммунологии им. Дмитрия Рогачева» Минздрава России, Москва

В работе описан клинический случай гигантской врожденной герминогенноклеточной опухоли (незрелая тератома, 2-я степень зрелости) мягких тканей головы и шеи с деструкцией большого крыла клиновидной кости, с распространением на полость рта с переходом за среднюю линию, инфильтрацией языка, полной обструкцией просвета носо- и ротоглотки у ребенка 15 дней жизни. Описаны особенности выполнения хирургического вмешательства с учетом распространенности опухолевого процесса. Обсуждаются вопросы классификации тератом, методы диагностики, представлены современные принципы терапии пациентов с данным заболеванием.

Ключевые слова: дети, герминогенноклеточные опухоли, врожденная незрелая тератома, редкие опухоли.

Контактная информация:

Сагоян Гарик Барисович, ординатор по специальности «детская онкология», Национальный медицинский исследовательский центр детской гематологии, онкологии и иммунологии им. Дмитрия Рогачева Минздрава России.
Адрес: 117997, Москва, ГСП-7, ул. Саморы Машела, 1
E-mail: sagoyan-garik@mail.ru

DOI: 10.24287/1726-1708-2017-16-3-73-80

Congenital immature teratoma of head and neck: case report

G.B. Sagoyan, D.Y. Kachanov, H.C. Grachev, A.M. Mitrofanova, R.A. Moiseenko, I.N. Vorozhtcov, G.V. Tereschenko, T.V. Shamanskaya, S.R. Varfolomeeva

Dmitriy Rogachev National Medical Research Center of Pediatric Hematology, Oncology, Immunology Ministry of Healthcare of Russian Federation, Moscow

The clinical case of a giant congenital germ cell tumor (immature teratoma, 2 grade) of soft tissues of the head and neck with destruction of the large wing of the sphenoid bone, with spreading to the oral cavity with the transition beyond the middle line, infiltration of the tongue, complete obstruction of the nasopharyngeal the child 15 days of life. The article describes Specific features of performing surgical intervention are described taking into account the prevalence of the tumor process. The discussed issues of teratoma classification, methods of diagnosis, provision of modern principles of therapy for patients with this disease.

Key words: children, germ cell tumor, congenital immature teratoma, rare tumor.

Correspondence:

Garik B. Sagoyan, MD, Dmitriy Rogachev National Medical Research Center of Pediatric Hematology, Oncology, Immunology Ministry of Healthcare of Russian Federation.
Address: Russia, 117997, Moscow, Samory Mashela st., 1
E-mail: sagoyan-garik@mail.ru

Герминогенноклеточные опухоли (ГКО) – гетерогенная группа новообразований с различной гистологической картиной, локализацией и клиническим течением, развивающихся из популяции плюрипотентных зародышевых клеток. В структуре заболеваемости злокачественными новообразованиями (ЗНО) детей в возрасте 0–14 лет ГКО составляют 3–4%. Гистологические типы этого вида опухолей разнообразны и включают как злокачественные (опухоль желточного мешка, хориокарцинома, дисгерминома, эмбриональный рак), так и доброкачественные (тератомы – зрелые и незрелые) новообразования [1–5].

ГКО встречаются в гонадах, но могут локализоваться экстрагонадально (крестцово-копчиковая область, забрюшинное пространство, переднее средостение, пинеальная область, шея). На долю экстрагонадальных опухолей приходится около 55% всех случаев ГКО [2], при этом поражение области головы и шеи описано лишь в 2,5% случаев [3, 6, 7].

Тератомы шеи и головы, возникающие у плода внутриутробно, – чрезвычайно редкие опухоли.

Частота их встречаемости составляет 0,25:10000 родов [2, 6, 7]. Показано, что локализация опухоли в области головы и шеи может приводить к развитию жизнеугрожающих состояний в перинатальном периоде, поэтому с момента выявления опухоли требуется четкая организация медицинской помощи [3, 6, 7, 8].

Цель публикации – анализ клинического случая врожденной незрелой тератомы с локализацией в области головы и шеи у ребенка 15 дней жизни.

КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ

Мальчик родился от первой беременности, протекавшей на фоне токсикоза в I триместре, угрозы прерывания беременности на всех сроках гестации. Роды преждевременные, родоразрешение оперативное, путем кесарева сечения на 36-й неделе беременности. Показанием к кесареву сечению послужило пренатально диагностированное объемное образование области головы и шеи, распространяющееся в полость рта, по данным ультразвукового

исследования (УЗИ) на 32-й неделе беременности. Масса тела при рождении – 2534 г, рост – 43 см. При рождении состояние ребенка расценивалось как тяжелое, обусловленное респираторными нарушениями из-за мягкотканного образования, располагающегося в подчелюстной области и на передней поверхности шеи, выступающего через ротовую полость. Потребовалось проведение трахеостомии и искусственной вентиляции легких (ИВЛ) в течение 2 часов.

На 5-е сутки после рождения ребенок был переведен в отделение выхаживания недоношенных новорожденных. В возрасте 7 дней была выполнена мультиспиральная компьютерная томография (МСКТ) головы и шеи: выявлено объемное новообразование, представляющее собой массивное образование мягких тканей головы и шеи с распространением в правую подвисочную ямку, крылонебную

Рисунок 1

МСКТ головы и шеи: на КТ-изображениях мягких тканей шеи с контрастным усилением (венозная фаза) определяется массивное кистозно-солидное образование с четкими неровными контурами, объемом 198 см³, неравномерно накапливающее контрастный препарат



ямку с деструкцией большого крыла клиновидной кости с распространением в полость рта и переходом за среднюю линию, инфильтрацией языка, полной обструкцией просвета носо- и ротоглотки, а также распространением наружу через рот, размером 66×46×42 мм (объем – 66 см³).

При поступлении ребенка в Национальный научно-практический центр детской гематологии, онкологии и иммунологии им. Дмитрия Рогачева Минздрава России (ННПЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева) в возрасте 15 дней в клиническом статусе обращали на себя внимание респираторные нарушения за счет опухоли, распространяющейся в полость рта; дыхание осуществлялось через трахеостому, сатурация O₂ – 96–98%. Отмечена также деформация головы, подчелюстной области и шеи за счет наличия объемного образования: рот открыт, изо рта выступает мягкотканное образование, смещенное вправо по отношению к срединной линии языка. Полость рта деформирована за счет образования.

Ребенку провели комплексное обследование.

МСКТ головы и шеи: выявлено объемное образование с резким увеличением размеров по сравнению с предыдущим исследованием – с 66×46×42 мм (объем – 66 см³) до 108×98×114 мм (объем – 198 см³) (рис. 1).

Магнитно-резонансная томография (МРТ): в мягких тканях головы и шеи справа определяется опухолевое кистозно-солидное образование неправильной формы с нечеткими, неровными контурами – до 7,0 см (вертикальный размер) × 6,7 см (поперечный размер) × 8,2 см (передне-задний размер), объем – 200 см³; верхний полюс опухоли достигает основания черепа, правой подвисочной и крылонебной ямок. Правые отделы языка и верхняя губа инфильтрованы опухолевым образованием (рис. 2).

Определение концентраций онкомаркеров в крови: альфа-фетопротеин – 6773,19 нг/мл (в пределах возрастной нормы); нейрон-специфическая энзолаза (NSE) – 43,91 нг/мл (норма < 16,3 нг/мл); бета-хорионический гонадотропин < 1,2 мМЕд/мл (норма 0–3 мМЕд/мл); ферритин – 220,5 мкг/л (норма 6–60 мкг/л).

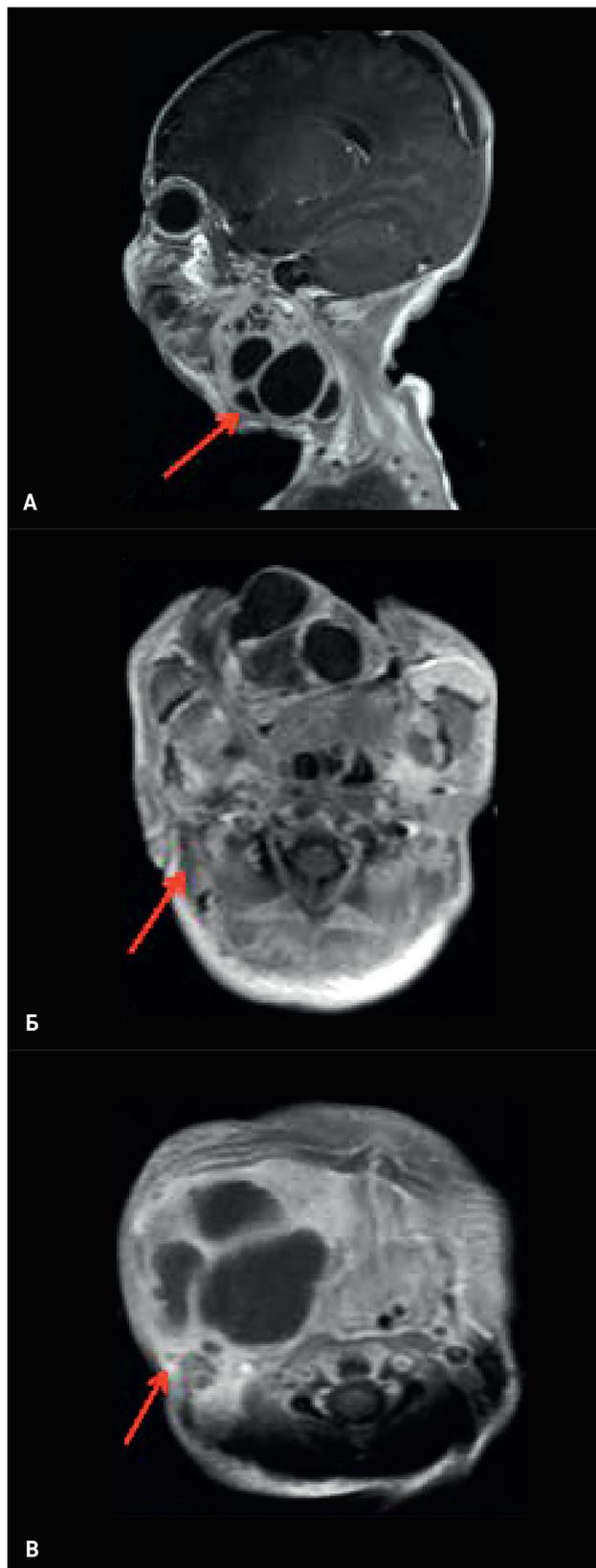
При проведении морфологического исследования пунктатов костного мозга, МСКТ органов грудной клетки и органов брюшной полости, МРТ головного мозга данных за метастатическое поражение не получено.

После проведения необходимого объема диагностических процедур выполнена открытая биопсия новообразования. Гистологические характеристики опухоли соответствовали незрелой тератоме, 2-я степень незрелости (*grade 2*) (рис. 3).

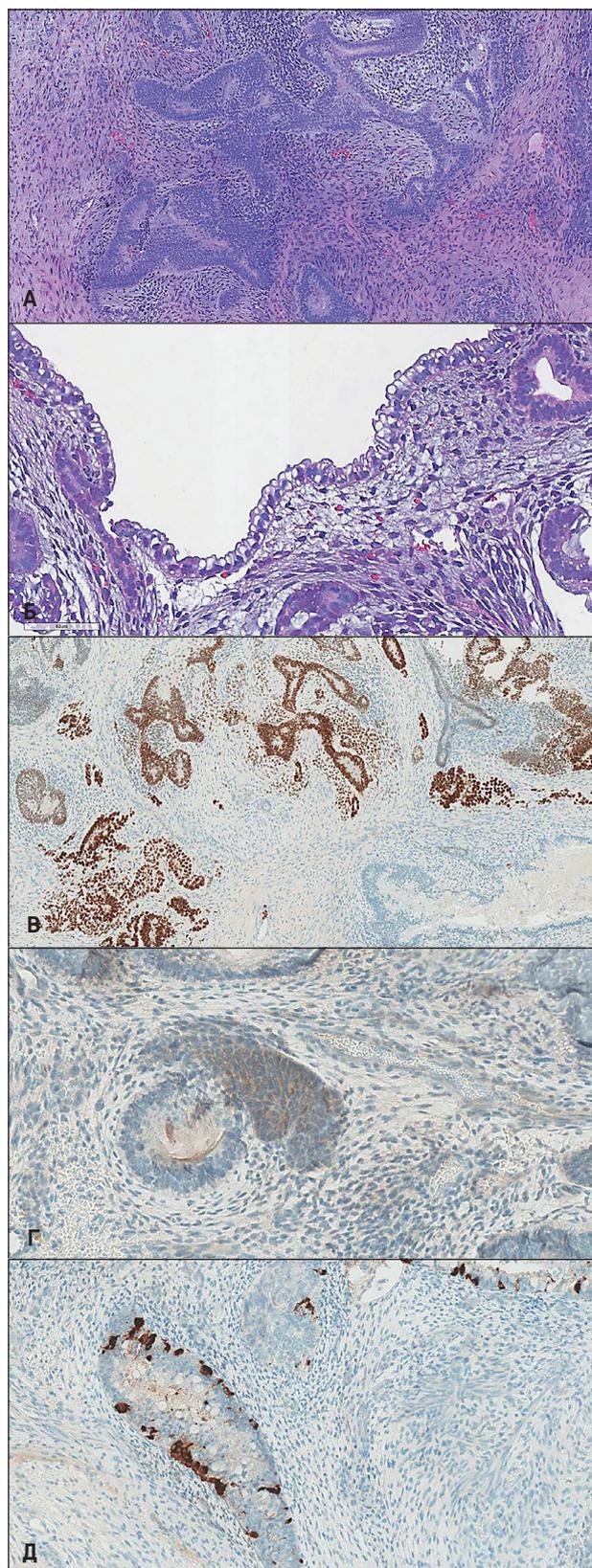
Таким образом, на основании данных анамнеза, результатов физикального обследования, лабораторных и инструментальных методов исследования

Рисунок 2

МРТ головы и шеи: на МР-изображениях в сагитальной (А) и аксиальной проекциях (Б, В) в режимах T1+C и T1+C Fatsat в области мягких тканей шеи справа, распространяясь в подвисочную, крылонебную ямки и полость рта, с инфильтрацией правых отделов языка и верхней губы определяется опухолевое кистозно-солидное образование неправильной формы с нечеткими неровными контурами, интенсивно накапливающее контрастное вещество в солидном компоненте

**Рисунок 3**

Гистологическая картина незрелой тератомы, grade 2 (до начала терапии): А – множественные нейрональные трубки, чередующиеся с эпителиальными структурами, гематоксилин-эозин, $\times 100$; Б – зрелый эпителий, выстилающий кисту, гематоксилин-эозин, $\times 400$; В – гиперэкспрессия Sall4 в эпителиальных структурах, слабая – в нейрональных трубках, Sall4 $\times 100$; Г – NSE в примитивных структурах, NSE $\times 200$; Д – хромогранин-секретирующие клетки в эпителии кишечного типа, *ChromograninA* $\times 100$



(уровень онкомаркеров, МРТ и МСКТ головы и шеи), учитывая гистологическое заключение, ребенку был установлен клинический диагноз: врожденная ГКО (незрелая тератома, 2-я степени незрелости) мягких тканей головы и шеи с распространением в правую подвисочную ямку, крылонебную ямку, деструкцией большого крыла клиновидной кости с распространением в полость рта с переходом за среднюю линию, инфильтрацией языка, полной обструкцией просвета носо- и ротоглотки, а также распространением через рот наружу. T2bN0M0, III клиническая группа по IRS (*Intergroup Rhabdomyosarcoma Study*).

Учитывая быстрое увеличение размеров образования в течение 6 дней пребывания в ННПЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева, гигантские размеры образования, было принято решение о проведении полихимиотерапии (ПХТ) по протоколу MAKEI-96. С целью обеспечения адекватного энтерального питания ребенку была наложена пункционная гастростома.

Проведено два курса PE (цисплатин – 20 мг/м², 1–5-й дни; этопозид – 100 мг/м², 1–3-й дни) с расчетом доз цитостатиков на 1 кг массы тела, согласно рекомендациям протокола.

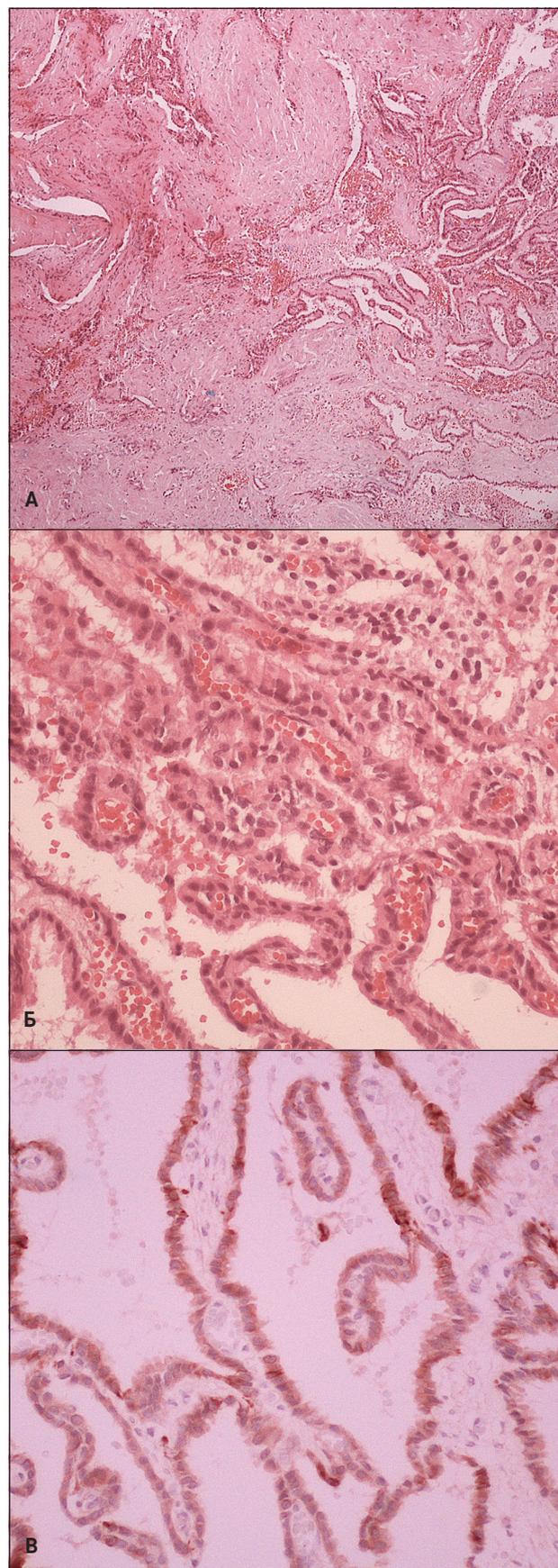
На МСКТ мягких тканей головы и шеи, проведенной после 1-го курса ПХТ, отмечено уменьшение размеров образования на 26,5% по сравнению с инициальным исследованием, выполненным в ННПЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева.

На МРТ мягких тканей головы и шеи, проведенной после 2-го курса ПХТ, отмечено уменьшение опухоли до размера 6,4×5,6×8,6 см (объем – 163,3 см³). По сравнению с данными МРТ до начала специфической терапии опухоль уменьшилась на 20% – согласно протоколу, это соответствует стабилизации процесса, в связи с этим было принято решение не проводить 3-й курс ПХТ. Рекомендовано хирургическое лечение.

Выполнена операция по удалению образования дна полости рта, ротовой полости, биопсия шейных лимфоузлов. Образование имело несколько крупных компонентов. Отмечена выраженная деформация альвеолярных отростков челюстей, смыкание их невозможно. Движения нижней челюсти были ограничены и заблокированы в височно-нижнечелюстном суставе. Опухоль проросла в мышцы дна полости рта, распространялась в корень языка, а также через миндаликовые дужки соединялась со вторым массивным фрагментом опухоли в полости рта. Визуальные ориентиры ротовой полости были резко изменены. Выявлены короткая уздечка языка, дистопия мягкого неба и язычка, расщелина твердого неба по срединной линии. При осмотре обнаружено, что ротовая полость полностью выполнена образованием, смыкание челюстей невозможно. Образование распространялось в парафарингеальное пространство,

Рисунок 4

Гистологическая картина зрелой тератомы (после двух курсов ПХТ): А – щелевидные полости в соединительнотканной строме, гематоксиин-эозин ×40; Б – зрелый эпителий полостей, гематоксиин-эозин ×400; В – кератин в зрелом эпителии, panCK ×400



находилось в интимной близости с внутренней сонной артерией справа. После удаления опухолевого компонента во рту определялся массивный дефицит слизисто-надкостничного лоскута в проекции твердого неба. Операция выполнена макроскопически радикально (R1 резекция).

Гистологические характеристики соответствовали зрелой тератоме. Изменение гистологического диагноза было обусловлено феноменом дозревания и дифференцировки опухоли на фоне проводимой ПХТ.

Учитывая гистологический тип опухоли после лечения (зрелая тератома) (рис. 4), проведение ПХТ по протоколу MAKEI-96 не было показано.

Ребенок в возрасте 3 мес. в стабильном соматическом статусе был выписан под динамическое наблюдение детского онколога по месту жительства, однако в возрасте 6 мес. повторно госпитализирован в ННПЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева с наличием в полости рта в ретромолярной области образования неправильной формы синюшно-розового цвета с гладкой поверхностью, диаметром около 3 см, смещающего язык влево.

По данным МРТ головы и шеи, в правых отделах носоглотки с распространением на ротоглотку, правую евстахиеву трубу определяется кистозное образование неправильной формы, с неровными контурами – до 4 см (передне-задний размер) × 2,7 см (поперечный размер) × 3,2 см (вертикальный размер), объемом – 18 см³. Образование деформирует небо, глоточную миндалину, оттесняет язык влево. Таким образом, констатирован рецидив заболевания.

Выполнено оперативное вмешательство – макроскопически радикально (R1 резекция) в объеме удаления новообразования. По результатам морфологического исследования диагностирована зрелая тератома.

После второй операции прошло 3 месяца: состояние ребенка стабильное, сохраняется асимметрия лица, дыхание осуществляется через трахеостому, нутритивная поддержка – через гастростому. Паци-

ент выписан под динамическое наблюдение детского онколога, детского хирурга по месту жительства. Рекомендовано: выполнение МРТ 1 раз в 3 месяца (1-й год наблюдения), контроль уровня АФП – 1 раз в месяц.

На третьем месяце после второй операции ребенку выполнено МРТ головы и шеи: определялся небольшой компонент остаточной опухоли, располагающийся на основании черепа в области рваного отверстия, размером 0,8×1,0 мм. Принято решение о госпитализации ребенка в отделение хирургии детей и подростков ННПЦ ДГОИ им. Дмитрия Рогачева через 3 месяца для контрольного обследования; в случае отсутствия данных за рост остаточного компонента опухоли будет проведена деканюляция.

ОБСУЖДЕНИЕ РЕЗУЛЬТАТОВ ИССЛЕДОВАНИЯ

Впервые термин «тератома» (от др.-греч. *τερατοζ* – чудовище, *-ομα* – опухоль) предложил в 1869 году *Р. Вирхов*, он описал характерную макроскопическую картину опухоли [9]. В 1967 году *R.A. Willis* дал определение: тератома – опухоль, состоящая из множества тканей, чужеродных тем, которые встречаются в этой анатомической локализации [9].

Развитие тератомы – сложный процесс. В период развития эмбриона первоначальные зародышевые клетки, которые обнаруживаются в энтодерме желточного мешка уже у 4-недельного эмбриона, мигрируют из энтодермы желточного мешка к генитальному гребню в забрюшинном пространстве, где развиваются половые железы, которые затем спускаются в мошонку, формируя яички, или в малый таз, образуя яичники [2, 3, 6, 10]. Если в этот период по каким-либо причинам происходит нарушение нормального процесса миграции из краниального конца в каудальный и зародышевые клетки задерживаются в любом месте своего следования, то там может сформироваться опухоль [6, 10]. Наиболее частая локализация тератом – гонады и крестцово-копчиковая область (51–60%), средостение (10–30%),

Таблица 1

Классификация тератом (ВОЗ, 2014) [12]

Тератомы	Доброкачественные	Степень зрелости – 0 и 1
	Злокачественные	Степень зрелости – 2 и 3 + герминативно-клеточные опухоли более одного гистологического типа – сочетание зрелой или незрелой тератомы с любой/любыми другими герминативноклеточными/негерминативноклеточными злокачественными опухолями (всегда высокой степени злокачественности)

Таблица 2

Степени зрелости (ВОЗ, 2014) [12]

Степень	Интерпретация
0	Отсутствие незрелого компонента
1	< 1 поля зрения при увеличении ×40 составляют примитивные нейроэпителиальные структуры в любом срезе (<i>low-grade</i>)
2	1–3 поля зрения ×40 составляет незрелый компонент в любом срезе (<i>high-grade</i>)
3	> 3 полей зрения при увеличении ×40 в любом срезе составляют примитивные нейроэпителиальные структуры (<i>high-grade</i>)

забрюшинное пространство (11–20%), в области шеи их обнаруживают в 3–5% случаев [2, 3, 6, 10, 11].

Гистологическая классификация тератом: зрелая тератома – 85%; незрелая тератома – 15%; герминогенно-клеточные опухоли более одного гистологического типа (сочетают элементы двух и более типов опухолей) – 1% [2, 6, 8, 10].

Незрелая тератома с преобладанием примитивных структур нейроэктодермы (незрелые трубки и розетки) может рассматриваться как потенциально злокачественная [9]. Как правило, незрелые ткани сочетаются со зрелыми. Тератомы, полностью состоящие из незрелых тканей, у детей редки [2].

Современная классификация тератом и степень их зрелости (*Всемирная организация здравоохранения, 2014*) [12] представлены в *таблицах 1, 2*. Известно, что зрелая тератома – это доброкачественная, высокодифференцированная опухоль. Гистологическая картина может быть представлена зрелой нейроглией, костной тканью, волосами, хрящем, гепатоцитами, гладкими и поперечно-полосатыми мышцами, кистозными и железистыми структурами, энтеральными железами, структурами, по строению напоминающими респираторный тракт, и другими зрелыми соматическими структурами [9].

В незрелой тератоме имеются не полностью дифференцированные (незрелые) соматические структуры, которые воспроизводят процессы органогенеза у эмбрионов [9]. Наиболее характерный компонент – незрелая нейроэктодерма с примитивными медуллобластоподобными клетками, нейробластами и псевдорозетками. Эти структуры могут дифференцироваться в зрелую нервную ткань. Такие опухоли способны метастазировать, причем в метастатическом очаге встречаются структуры и ткани разной степени зрелости, в том числе и такие, которые отсутствуют в первичном новообразовании.

При диагностике тератом важно определить концентрацию альфа-фетопротеина (АФП) и бета-хорионического гонадотропина (β ХГЧ). Известно, что АФП начинает обнаруживаться в сыворотке крови плода с 4-й недели беременности; его концентрация достигает пика между 12–13-й неделей, затем его содержание снижается, достигая нормального уровня у годовалого ребенка. Определение этого онкомаркера облегчает диагностику опухолей у детей, оценку прогноза, эффективности лечения и наблюдение за больными [2, 6, 7, 15]. Для интерпретации результатов у детей первого года жизни необходимо использовать возрастные референсные значения данного показателя [13]. Кроме того, учитывая физиологически высокие значения АФП у детей первого года жизни, интерпретация результатов возможна только

при оценке уровня АФП в динамике. Сохраняющиеся показатели, превышающие возрастную норму, или повышение уровня АФП в динамике свидетельствуют о наличии злокачественной ГКО – опухоли желточного мешка.

Для сывороточного β ХГЧ диагностическим считают повышение концентрации > 50 ЕД/л. Гистологический вариант ГКО, продуцирующий β ХГЧ, – хориокарцинома. Герминома также может секретировать β ХГЧ. Секретирующими называют ГКО, при которых в сыворотке определяются повышенные концентрации АФП и β ХГЧ.

К визуализирующим методам диагностики относятся МСКТ и МРТ с контрастом, это позволяет оценить размеры и распространенность опухолевого процесса [2, 6, 10].

Тератомы шеи и головы встречаются достаточно редко. На сегодняшний день один из основных методов пренатальной диагностики – УЗИ [3, 11, 15]. Об опухолевом процессе при выполнении УЗИ могут свидетельствовать следующие признаки: анатомическое строение плода, аномалии движения, нарушение формы, контура. При визуализации опухолевого образования необходимо междисциплинарное обсуждение тактики ведения беременности, родов, новорожденных с опухолью с другими специалистами (неонатологами, акушерами, детскими хирургами, детскими онкологами, радиологами), именно такой подход увеличивает выживаемость детей с врожденными новообразованиями [2, 16]. Общепринят подход, основанный на повторном проведении УЗИ с целью оценки динамики роста опухоли и выбора оптимального срока родоразрешения. В большинстве случаев методом выбора является кесарево сечение, в процессе которого должны быть обеспечены все условия для проведения интубации трахеи и ИВЛ в случае респираторных нарушений, обусловленных наличием опухоли. Так, по данным Немецкого регистра ГКО, из 23 пациентов с ГКО головы и шеи кесарево сечение требовалось в 18 (78,2%) случаях, интубация и ИВЛ – в 14 (60,8%) [3]. Проведение данных манипуляций позволяет снизить перинатальную смертность пациентов с опухолями головы и шеи. По статистике, мертворожденные с наличием тератоидных масс в области головы и шеи составляют около 17%; смертность новорожденных с наличием тератоидных масс в области головы и шеи без хирургического лечения – 80–100%; при хирургическом лечении – 9–17% [3, 6, 10, 17, 18].

Основной метод терапии при зрелой и незрелой тератомах – хирургическое удаление опухоли [7, 8]. Ввиду анатомических особенностей детей младшего возраста при проведении хирургического лечения данного заболевания, локализованного на органах головы и шеи, хирург сталкивается с рядом техни-

ческих трудностей: выраженной деформацией челюстей, дефицитом тканей, врожденными пороками развития лицевого черепа и отсутствием возможности одномоментной ортогнатической коррекции и микрохирургической реконструкции. Таким образом, у пациентов данной группы после достижения определенного возраста требуется выполнение многоэтапных реконструктивно-пластических коррекций.

Зрелые и незрелые тератомы рассматриваются как химиорезистентные новообразования [19], однако у ряда пациентов, как в нашем случае, химиотерапия может приводить к остановке опухолевого роста и позволяет подготовить ребенка к сложным хирургическим вмешательствам [3]. В рамках современных протоколов лечения пациентов с ГКО проведение ПХТ показано пациентам с тератомами в том случае, если отмечается повышение уровня онкомаркеров (АФП, β ХГЧ), что, в свою очередь, свидетельствует о ГКО более одного гистологического типа (смешанной ГКО) [1–3, 5].

Тщательное гистологическое исследование всего субстрата опухоли в ряде случаев позволяет выявить микрофокусы опухоли желточного мешка при нормальных уровнях АФП. Частота данного феномена может достигать до 26% [20]. Показано, что наличие микрофокусов опухоли желточного мешка не является основанием к проведению ПХТ в случае радикального удаления опухоли. Однако в рамках текущих рекомендаций Немецкого регистра ГКО пациентам с макроскопически остаточной опухолью после операции (R2 резекция) и наличием микрофокусов опухоли желточного мешка рекомендовано проведение адъювантной терапии на основе цисплатина [21].

Показано, что на прогноз заболевания у пациентов с тератомами влияет радикальность хирургического вмешательства, степень зрелости при незрелых тератомах и наличие микрофокусов опухоли желточного мешка [21]. Следует отметить, что рецидив заболевания может быть представлен как элементами зрелой/незрелой тератомы, так и злокачественной ГКО – опухолью желточного мешка. Проведение адъювантной ПХТ не влияет на частоту развития рецидивов, представленных доброкачественными гистологическими вариантами ГКО, но снижает риск развития рецидива, обусловленного опухолью желточного мешка [21].

Улучшение качества медицинской помощи детям раннего возраста привело к увеличению выживаемости: в 1958–1983 годах 5-летняя общая выживаемость (ОВ) составляла только 40%; в 1984–1993 годах – 79%, в настоящее время 20-летняя ОВ при незрелой тератоме равна 83,33% [2, 3]. Частота рецидивов при нерадикальном удалении тератом высо-

ка, бессобытийная выживаемость (БСВ) составляет лишь 55%. По данным американских авторов, радикальное хирургическое вмешательство у пациентов с незрелой тератомой различной локализации позволяет добиться высоких показателей БСВ (80–100%) [7, 20], при этом худшие результаты получены у пациентов с внегонадными локализациями опухоли. В исследовании Немецкого регистра ГКО показано, что 5-летняя БСВ и ОВ пациентов с ГКО с локализацией в области головы и шеи составила 81 и 95% [3]. Наибольшие трудности в обеспечении радикальности хирургического вмешательства отмечены, как у описанного нами пациента, при распространении опухоли в носоглотку и гортаноглотку.

Проведение адекватного мониторинга, включающего как анатомическую визуализацию, так и контроль уровня АФП, позволяет своевременно диагностировать рецидив заболевания у пациентов со зрелыми и незрелыми тератомами.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

В представленном клиническом случае у ребенка с пренатально диагностированной тератомой были предприняты упреждающие меры. Сложность хирургического лечения заключалась в том, что опухоль располагалась в непосредственной близости к жизненно важным анатомическим структурам и в малом возрасте ребенка, что, в свою очередь, определяло невозможность проведения радикальной операции. Данное клиническое наблюдение демонстрирует важность своевременной пренатальной диагностики, междисциплинарного подхода, комплексного обследования и адекватного выбора терапевтической тактики у пациентов с редкой формой незрелой тератомы шеи и головы с распространением через ротовую полость. Необходима разработка четкой маршрутизации и этапности оказания в России специализированной медицинской помощи в случае выявления у плода объемного образования головы и шеи. Ранний перевод новорожденного в специализированные центры, обладающие возможностями для проведения интенсивной терапии, ПХТ и хирургических вмешательств на области головы и шеи, может улучшить результаты лечения данной группы больных.

ИСТОЧНИК ФИНАНСИРОВАНИЯ

Не указан.

КОНФЛИКТ ИНТЕРЕСОВ

Авторы статьи подтвердили отсутствие конфликта интересов, о котором необходимо сообщить.

ORCID

Г.Б. Сагоян <http://orcid.org/0000-0002-7846-3473>

Д.Ю. Качанов <http://orcid.org/0000-0002-3704-8783>

Литература

- Rogres P.S., Oslon T.A., Cullen J.W., et al. Treatment of children and adolescents with stage II testicular and stages I and II ovarian malignant germ cell tumors: Pediatric Intergroup Study – Pediatric Oncology Group 9048 and Children's Cancer Group 8891. *J Clin Oncol* 2004; 22 (17): 3569–663.
- Schneider D.T., Calaminus G., et al. Epidemiologic Analysis of 1,442 Children and Adolescents Registered in the German Germ Cell Tumor Protocols. *Pediatr Blood Cancer* 2004; 42: 169–75.
- Bernbeck B., Schneider D.T., Bernbeck B., et al. Germ Cell Tumors of the Head and Neck: Report from the MAKEI Study Group. *Pediatr Blood Cancer* 2009; 52: 223–6.
- Harms D., Janig U. Germ cell tumours of childhood. Report of 170 cases including 59 pure and partial yolk-sac tumours. *Virchows Arch a Pathol Anat Histopathol* 1986; 409 (2): 223–39.
- Грачев Н.С., Варфоломеева С.П., Качанов Д.Ю. и др. Междисциплинарное взаимодействие при лечении герминогенной опухоли верхней челюсти у ребенка двух лет (клинический случай). *Российский журнал детской гематологии и онкологии* 2014; 2: 102–3.
- Sheikh F., Akinkuotu A., Olutoye O.O., et al. Prenatally diagnosed neck masses: long-term outcomes and quality of life. *J Pediatr Surg* 2015; 50 (7): 1210–3.
- Alexander V.R., Manjaly J.G., Pepper C.M., et al. Head and neck teratomas in children – A series of 23 cases at Great Ormond Street Hospital. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2015; 79 (12): 2008–14.
- Brodsky J.R., Irace A.L., Didas A., et al. Teratoma of the neonatal head and neck: A 41-year experience. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2017; 97: 66–71.
- Патологическая анатомия: Курс лекций. Учебное пособие /Под ред. В.В. Серова, М.А. Пальцева. – М.: Медицина, 1998.
- Tonni G., De Felice C., Centini G., et al. Cervical and oral teratoma in the fetus: a systematic review of etiology pathology diagnosis treatment and prognosis. *Arch Gynecol Obstet* 2010; 282 (4).
- Looijenga L.H., Oosterhuis J.W. Pathobiology of testicular germ cell tumors: views and news. *Anal Quant Cytol Histol* 2002; 24 (5): 263–79.
- Holger M., Humphery P.A., Ulbright T.A., et al. WHO Classification of Tumours of the Urinary System and Male Genital Organs. International Agency for Research on Cancer, Lyon, 2016; 61.
- Teilum G., Albrechtsen R., Norgaard-Pedersen B. The histogenetic-embryologic basis for reappearance of alpha-fetoprotein in endodermal sinus tumors (yolk sac tumors) and teratomas. *Acta Pathol Microbiol Scand A* 1975; 83 (1): 80–6.
- Blohm M.E., Vesterling-Hörner D., Calaminus G., et al. Alpha 1-fetoprotein (AFP) reference values in infants up to 2 years of age. *Pediatr Hematol Oncol* 1998; 15 (2): 135–42.
- Трубникова Г.В., Степанова Т.В., Буданова М.В. и др. Опухоли у новорожденных детей. *Детская онкология (дополнение): 5 съезд детских онкологов России. Тезисы* 2012; 3: 73.
- Meizner I. Perinatal oncology – the role of prenatal ultrasound diagnosis. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2000; 16 (6): 507–9.
- De Backer A., Madern G.C., van de Ven C.P., et al. Strategy for management of newborns with cervical teratoma. *J Perinat Med* 2004; 32 (6): 500–8.
- Kerner B., Flaum E., Mathews H., et al. Cervical teratoma: prenatal diagnosis and long-term follow-up. *Prenat Diagn* 1998; 18 (1): 51–9.
- Mann J.R., Gray E.S., Thornton C., et al. UK Children's Cancer Study Group Experience. Mature and immature extracranial teratomas in children: the UK Children's Cancer Study Group Experience. *J Clin Oncol* 2008; 26 (21): 3590–7.
- Marina N.M., Cushing B., Giller R., et al. Complete surgical excision is effective treatment for children with immature teratomas with or without malignant elements: A Pediatric Oncology Group/Children's Cancer Group Intergroup Study. *J Clin Oncol* 1999; 17 (7): 2137–43.
- Göbel U., Calaminus G., Schneider D.T., et al. The malignant potential of teratomas in infancy and childhood: the MAKEI experiences in non-testicular teratoma and implications for a new protocol. *Klin Padiatr* 2006; 218 (6): 309–14.