

## ТИРЕОИДНЫЕ ТЕРАТОМЫ У НОВОРОЖДЕННЫХ

*Морозов Д.А.<sup>1,2</sup>, Пименова Е.С.<sup>2,1</sup>, Дворяковский И.В.<sup>1</sup>, Талалаев А.Г.<sup>1</sup>*<sup>1</sup>НИИ детской хирургии Научного центра здоровья детей (дир. — акад. РАН А.А. Баранов), 119991, Москва;<sup>2</sup>ГБОУ ВПО Первый московский государственный медицинский университет им. И.М. Сеченова

Для корреспонденции: Морозов Дмитрий Анатольевич; e-mail: damorozov@list.ru

For correspondence: Morozov Dmitriy Anatol'evich; e-mail: damorozov@list.ru

*Представлены обзор литературы и два клинических наблюдения редкой патологии — тератом щитовидной железы у новорожденных. Описаны принципы диагностики состояния и особенности хирургического лечения этих детей.*

*Ключевые слова: новорожденные; тератома щитовидной железы.*

## THYROID TERATOMAS IN NEWBORN BABIES

*Morozov D.A.<sup>1,2</sup>, Pimenova E.S.<sup>2,1</sup>, Dvoryakovskiy I.V.<sup>1</sup>, Talalaev A.G.<sup>1</sup>**Research Institute of Pediatric Surgery, Research Centre of Children's Health, Lomonosovsky prospect 2/1, 119991 Moscow; I.M. Sechenov First Moscow State Medical University*

*The authors review the literature and report 2 cases of rare pathology, thyroid teratoma of newborn babies. The principles of diagnostics and surgical treatment of this condition as described.*

*Key words: newborns; thyroid teratoma.*

Тератомы головы и шеи встречаются редко (1 на 20 000—40 000 тыс. живых новорожденных детей) [1], составляя не более 5% от всех герминогенно-клеточных опухолей [2] и 1,5—5,5% от общего числа тиреоидных опухолей [3, 4]. Чаще всего новообразования исходят из мягких тканей шеи, лица, носоглотки, реже — щитовидной железы. Тератому шеи необходимо дифференцировать от лимфангиомы, гемангиомы, эпигнатуса, увеличения щитовидной железы [5]. До сих пор 17% детей с тератомами шеи рождаются мертвыми [6], асфиксия остается серьезной причиной летальности и после родов. 30 лет назад 80% пациентов с тератомами шеи погибли не оперированными в период новорожденности; послеоперационная летальность составляла 15% [7].

Тератомы шеи, а тем более щитовидной железы, мало описаны в мировой литературе. В 1691 г. Grassi описал операцию, во время которой он удалил у женщины из объемного образования на шее полностью сформированный плод длиной в палец. Случай, описанный Joubert в 1754 г., вероятнее всего, был тератомой — "опухоль на шее плода была столь велика, что вызвала дистоцию, в опухоли найдены кости, хрящи и пустотелые элементы, похожие на петли кишок". Morgagni в 1766 г. обнаружил в удаленной опухоли волосы и образования, похожие на кишки [8]. В России имеются сообщения о лечении больных с пресакральными тиреоидными опухолями (Виноградов К.Н., 1876 г.), о тиреоидном образовании средостения впервые сообщил в 1889 г. А.П. Буйвид [9]. В 1839 г. Mondin описал большую опухоль шеи, заместившую щитовидную железу, которая получала кровоснабжение из верхних и нижних щитовидных артерий. Пер-

вый случай тератомы щитовидной железы (правой доли) описан Hess в 1854 г. (Thyroid gland separated by fibrous capsule from tumor). Материал был гистологически исследован спустя 40 лет Wetzel (1895 г.). Ранее в 1868 г. Roucher дал описание макро- и микроскопической картины тератомы щитовидной железы. В 1950 г. G.F. Vale писал, что истинные тератомы щитовидной железы кровоснабжаются тиреоидными артериями, остальные можно назвать тератомами шеи "в области щитовидной железы" [10]. Первая операция при тератоме щитовидной железы с излечением описана совсем недавно — в 1984 г. Schimmelbusch.

К герминативно-клеточным опухолям, по классификации ВОЗ (2004), относятся зрелые и незрелые тератомы, а также тератомы со злокачественной трансформацией. По классификации F. Gonzalez-Crussi (1982) [11], выделяют следующие формы заболевания:

- зрелые тератомы — G0;
- незрелые, вероятно, доброкачественные — G1;
- незрелые, вероятно, злокачественные — G2;
- злокачественные G3.

Зрелые тератомы G0 встречаются чаще (54,5%), незрелые тератомы G1—G2 — реже (45,5%), злокачественные (тератобластомы) — в 7,8% случаев [12].

Аntenатальную ультразвуковую диагностику тератом можно проводить в срок 15—16 нед гестации [13], хотя в области шеи плода в ранние сроки беременности она рутинно не выполняется и опухоль обычно выявляют во II—III триместре [5, 14].

Частота обструкции дыхательных путей различной степени выраженности при тератомах шеи составляет 35% [6]. Компрессия трахеи антенатально может привести к трахеомалиции, что также ухудшает прогноз

[15]. Считают, что при ультразвуковом исследовании (УЗИ) плода необходимо оценивать обструкцию не только дыхательных путей, но и пищеварительного тракта — очень важно определить заполнение желудка, так как при компрессии и "незаглатывании" околоплодных вод желудок будет меньше нормы [3]. Компрессия пищевода опухолью ведет к многоводию, что также нередко встречается при тератомах шеи [15].

Тератомы шеи и щитовидной железы требуют хирургического лечения. В отдельных случаях при значительной компрессии жизненно важных структур шеи новорожденного показана EXIT-процедура (ex-utero intrapartum treatment — вмешательство во время родов при сохранной пуповине). Иногда при сохранении фето-плацентарного кровотока прибегают не только к экстренным манипуляциям для восстановления проходимости дыхательных путей, но и непосредственно к оперативному удалению опухоли. Летальность при применении EXIT-процедуры остается высокой — 23%, в том числе по причине гипоплазии легких (4 из 17 детей, подвергшихся процедуре) [16]. Несостоятельность легочной перфузии признана значимой и при лечении более старших детей [4].

Ряд хирургов [17] считают, что успех хирургического лечения при тератоме зависит только от того, возможно ли ее радикальное оперативное иссечение, а не от степени зрелости тератомы, наличия в опухоли незрелой кишечной ткани, элементов желточного мешка. Это подтверждается наблюдением успешного оперативного лечения гигантской незрелой тератомы шеи с элементами эмбрионального рака у недоношенного ребенка, когда тератома в два этапа была полностью удалена [18].

В периоперационном периоде необходим мониторинг альфа-фетопротеина (АФП) крови для адекватной оценки лечения у пациента. Кроме того, исследовательская группа POG (Pediatric Oncology Group)/CCSG (Children's Cancer Study Group) использует специальные системы послеоперационного стадирования для оценки адекватности лечения новообразований яичек, яичников и внегонадных новообразований герминогенной природы. Приводим выдержку из этой системы:

### III. Внегонадные герминогенные опухоли.

I стадия — полное удаление новообразования при любой его локализации, при локализации в крестцово-копчиковой области проведено удаление копчика, гистологически резекция в пределах здоровых тканей. Содержание маркеров опухоли нормальное или повышено. Регионарные лимфатические узлы не поражены.

II стадия — микроскопически определяют злокачественные клетки по линии резекции, лимфатические узлы не поражены, содержание маркеров опухоли нормальное или повышено.

III стадия — после операции осталось массивное новообразование или проведена только биопсия. Забрюшинные лимфатические узлы могут быть поражены или не поражены опухолью. Содержание маркеров опухоли нормальное или повышено.

IV стадия — отдаленные метастазы, включая печень.

Наблюдения тератоидных опухолей щитовидной железы крайне редки [19], чаще это единичные кли-

нические случаи [20—22]. После оперативного лечения и визуальной оценки органного расположения опухоли, особенно ее кровоснабжения, правомочно изменение диагноза "тератомы шеи" на диагноз "тератома щитовидной железы". Два таких наблюдения мы хотим представить.

### Клиническое наблюдение 1

Ребенок Б., доношенный мальчик. Родился от 3-й беременности, протекавшей на фоне гестоза легкой степени тяжести. Масса тела при рождении 2950 г, оценка по шкале Апгар 7/7 баллов. После рождения выявлено объемное образование большой области шеи (дородовая ультразвуковая диагностика не проводилась). С 3-х суток жизни в связи с нарастанием компрессии верхних дыхательных путей и явлениями дыхательной недостаточности была начата искусственная вентиляция легких, ребенок признан инкурабельным, проводилась по-синдромная терапия. В возрасте 14 сут пациент госпитализирован в университетскую хирургическую клинику. При поступлении состояние ребенка тяжелое, продолжена искусственная вентиляция легких. В области шеи обнаружено "гигантское" объемное образование размером 20 × 15 × 10 см плотноэластической консистенции, несмещаемое, с бугристой неровной поверхностью, с истонченной над ним кожей (рис. 1 на вклейке). При УЗИ опухоль визуализировалась как кистозно-солидная структура и предположительно исходила из щитовидной железы. В ходе полипозиционной тонкоигольной аспирационной биопсии образования данных, указывающих на бластный процесс, не получено. Установлен клинический и лабораторный эутиреоз. Контроль уровня АФП.

Под интубационным комбинированным наркозом выполнена диссекция опухоли шеи. Установлено, что тератома кровоснабжалась посредством щитовидных артерий, исходя из правой доли щитовидной железы. Объем операции по сути соответствовал экстрафасциальной гемитиреоидэктомии справа (рис. 2 на вклейке). Мобилизация опухоли от трахеи потребовала пересечения vena thireoidea, в ходе операции были визуализированы и выделены на сосудистых ножках паратиреоидные железы справа, а также осуществлен контроль на всем протяжении возвратного гортанного нерва. Трахея деформирована, но без потери каркасной функции. Операцию завершили пликацией и пластикой мышц передней группы шеи для обеспечения дальнейшей функции сгибания и наклона головы, дренированием ложа удаленной опухоли.

Макроскопически опухоль представляла собой солидное образование с кистозными включениями без капсулы (рис. 3 на вклейке). Послеоперационный период протекал гладко. Ребенок был переведен на спонтанное дыхание на 3-и сутки после операции. Голос звучный. Начато зондовое кормление. На 10-е сутки пациент был переведен в хирургическое отделение в палату совместного пребывания. Получал кормление грудным молоком, глотал свободно. Выписка домой на 20-е сутки после операции в удовлетворительном состоянии. Гистоморфологически опухоль идентифицирована как зрелая тератома. Диагноз при выписке: зрелая тератома щитовидной железы.

Повторный осмотр через 6 мес после операции: ребенок рос и развивался соответственно возрасту, глотание свободное, голос звучный, ограничений движений в шейном отделе позвоночника нет. Уровень АФП крови снизился вдвое. При осмотре через год состояние мальчика удовлетворительное. Послеоперационный рубец без патологии — косметический результат хороший. Нарушения глотания, речи, движений в шейном отделе позвоночника отсутствуют. Уровень АФП снизился до нормальных значений.

## Клиническое наблюдение 2

Ребенок С., доношенный мальчик. Родился от 1-й беременности, протекавшей без особенностей. Антенатально патология не была выявлена. Масса тела при рождении 3340 г, оценка по шкале Апгар 8/8 баллов. После рождения в области шеи обнаружено объемное образование. На 18-е сутки жизни госпитализирован в хирургическое отделение Научного центра здоровья детей РАМН в удовлетворительном состоянии без нарушений дыхания. В передней области шеи определялось объемное образование размером  $8 \times 5 \times 5$  см плотноэластической консистенции, несмещаемое, безболезненное, с не измененной над ним кожей (рис. 4 на вклейке). Выполнено УЗИ: визуализируется кистозно-солидное опухолевидное образование в капсуле (рис. 5); судить о связи опухоли с щитовидной железой по данным этого исследования затруднительно. При магнитно-резонансной томографии (МРТ) головы и шеи подтверждено наличие округлого объемного образования с солидными и жидкостными компонентами, имеющего неровные, но четкие контуры. Компрессии верхних дыхательных путей и прорастания в окружающие ткани не обнаружено. Источник образования четко визуализировать не удалось. Выполнена полипозиционная тонкоигольная аспирационная биопсия образования (данных, указывающих на малигнизацию, не получено). Уровень тиреоидных гормонов и кальция был в пределах нормы. Уровень АФП крови  $> 2479,34$  МЕ/мл. Предоперационный диагноз: тиреоидная тератома; определены показания к операции. Консультирован детским онкологом, согласована стратегия лечения при первичности хирургического вмешательства. Ребенок был оперирован в плановом порядке. Опухоль неоднородной структуры выделена из предтиреоидных мышц до паратрахеального и паразофагеального пространств. Обнаружено, что она исходит из перешейка щитовидной железы, при этом кровоснабжается преимущественно из системы *arteria thyroidea superior dextra* (рис. 6 на вклейке). Визуализирован возвратный гортанный нерв справа и выполнена мобилизация парашитовидной железы на сосудистой ножке. Опухоль с перешейком удалена, выполнена частичная резекция правой и левой доли щитовидной железы (рис. 7). В послеоперационном периоде проводилась искусственная вентиляция легких в течение 10 ч. Энтеральное кормление начато через 20 ч после операции. Контролировался уровень электролитов, тиреоидных гормонов, АФП (Са крови 2,5 ммоль/л, трийодтиронин ( $T_3$ ) 5,62 пмоль/л, тироксин общий ( $T_4$ ) 16,26 пмоль/л, тиреотропный гормон (ТТГ) 2,47 мМЕд/л, АФП 252,47 МЕд/мл). Через 1 нед

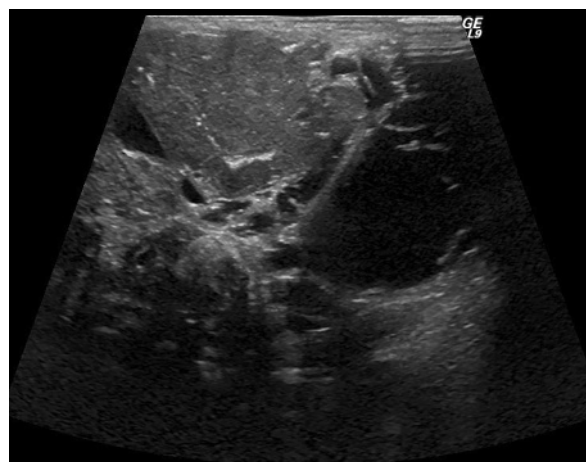


Рис. 5. Сонограмма тератомы перешейка щитовидной железы у новорожденного: полиморфная картина кистозно-солидной опухоли с плохо дифференцированной границей с интактной тиреоидной паренхимой.

ребенок выписан домой в удовлетворительном состоянии. Глотание не нарушено, голос звучный, заживление раны первичным натяжением. Микроскопически: зрелая тератома с преобладанием тканей головного мозга и сосудистого сплетения, дисплазия щитовидной железы с ульtimoбрахиальными тельцами (про-С-клетки) (рис. 8 на вклейке). Диагноз при выписке: зрелая тератома перешейка щитовидной железы. Состояние после иссечения опухоли, истмусэктомии, частичной резекции правой и левой доли щитовидной железы.

Катамнез через 3 мес: состояние ребенка удовлетворительное, растет и развивается соответственно воз-

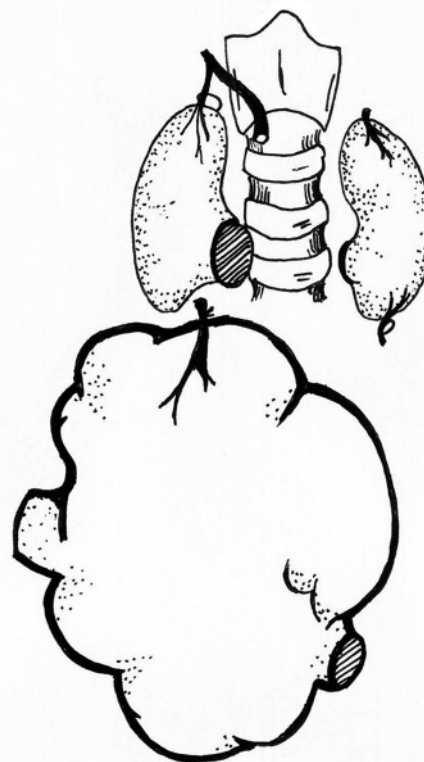


Рис. 7. Схема операции истмусэктомии с частичной резекцией обеих долей щитовидной железы и удалением тератомы перешейка у новорожденного.

расту, голос звучный, глотание свободное. Заместительной терапии тиреоидными гормонами не требует.

## Обсуждение

Тератома щитовидной железы у новорожденно-го — крайне редкое явление. Обследование и подготовка таких пациентов должны осуществляться с участием эндокринологов, онкологов, реаниматологов. Ребенок с объемным образованием шеи должен быть обследован на тиреоидную дисфункцию (ТТГ, Т<sub>3</sub>, Т<sub>4</sub>, антитела к тиреоидной пероксидазе, антитела к тиреоглобулину и пр.). При исследованиях инструментальными методами перед операцией (УЗИ, МРТ) возможны уточнение локализации опухоли, особенности ее кровоснабжения. Перед оперативным вмешательством необходимо контролировать уровень АФП крови, помня о том, что этот показатель повышен и у здоровых новорожденных, однако его мониторинг позволит вовремя диагностировать различные осложнения после удаления образования. Необходимо цитологическое исследование после тонкоигльной аспирационной биопсии опухоли для исключения злокачественного процесса. Детский хирург, оперирующий ребенка с объемным образованием щитовидной железы, должен иметь соответствующую квалификацию и обладать опытом выполнения операций на шее. Интраоперационное повреждение таких важных анатомических образований, как паращитовидные железы, возвратные гортанные нервы, ведет к серьезным осложнениям (гипокальциемия и судорожный синдром, осиплость и исчезновение голоса, нарушение глотания, дыхательные расстройства). Большие деформирующие опухоли шеи требуют коррективной пластики мышц шеи во избежание нарушений движений в шейном отделе позвоночника. При правильной тактике и своевременном лечении новорожденные со зрелыми тератомами шеи имеют благоприятный прогноз.

ЛИТЕРАТУРА [пп. 1—8, 10—13, 15—17, 19, 20 см. в REFERENCES]

9. Кузнецов И.Д., Розенштраух Л.С. *Рентгенодиагностика опухолей средостения*. М.: Медицина; 1970.
14. Гераськин А.В., Мокрушина О.Г., Морозов Д.А., Ахунзянов А.А., Гумеров А.А. Состояние и перспективы совершенствования хирургической помощи новорожденным с пороками развития. *Российский вестник перинатологии и педиатрии*. 2009; 54 (6): 7—12.
18. Деметьева Н.А., Сурков Д.Н. и др. Гигантская незрелая тератома шеи с элементами эмбрионального рака у недоношенного новорожденного: случай из практики и обзор литературы. *Неонатология, хирургия и перинатальная медицина*. 2012; 2 (4): 69—77.
21. Морозов Д.А., Пименова Е.С., Филиппова С.И., Шишканов В.П., Попылькова Т.В., Тарасова Д.С. Хирургическое лечение тератоидных опухолей у детей (мультицентровое исследование, анализ 100 случаев). В кн.: *Материалы X Российского конгресса "Инновационные технологии в педиатрии и детской хирургии"*. М.; 2011; 397—8.
22. Караваяева С.А., Гараев В.Р., Сорокина И.С., Удалова А.Н., Шишканова О.Ю., Степанова Г.В. Незрелая тератома шеи у новорожденного. *Онкохирургия*. 2010; 2 (4): 42—4.

## REFERENCES

1. Kuo T.N., Sun Y.H., Hong N.S., Tsai H.C., Lin C.C., Lin M.Y. et al. Multidisciplinary examination for prenatal diagnosis of posterior

- cervical teratoma in early second trimester. *Taiwan J. Obstet. Gynecol.* 2013; 52 (2): 270—2.
2. Kim E., Bae T.S., Kwon Y., Kim T.H., Chung K.W., Kim S.W. et al. Primary malignant teratoma with a primitive neuroectodermal tumor component in thyroid gland: A case report. *J. Korean Med. Sci.* 2007; 22 (3): 568—71.
3. Padilla Iserte P., Sanroma Pérez A., Ferri Folch B., Rubio Moll J., Diago Almela V., Perales-Marín A. Ultrasound evaluation of congenital cervical teratoma and therapeutic management (Ex utero intrapartum treatment). *Case Rep. Obstet. Gynecol.* 2012; Article ID 597489, 4 pages. Available at: doi:10.1155/2012/597489.
4. Jain G., Varshney R. Anaesthetic challenges in a patient presenting with huge neck teratoma. *Saudi J. Anaesth.* 2013; 7 (2): 210—2.
5. Rauff S., Kien T.E. Ultrasound diagnosis of fetal neck masses: A case series. *Case Rep. Obstet. Gynecol.* 2013, Article ID 243590, 3 pages. Available at: <http://dx.doi.org/10.1155/2013/243590>
6. Herman T.E., Siegel M.J. Cervical teratoma. *J. Perinatol.* 2008; 28: 649—51.
7. Gundry S.R., Wesley J.R., Klein M.D., Barr M., Coran A.G. Cervical teratomas in the newborn. *J. Pediatr. Surg.* 1983; 18 (4): 382—6.
8. Pusch L.C., Nelson C.M. Congenital teratoma of the thyroid gland. Report of a case with a review of the literature. *Am. J. Cancer.* 1935; 23: 791—6.
9. Kuznetsov I.D., Rozenshtaukh L.S. *X-ray Diagnosis of Tumors of the Mediastinum*. [Rentgenodiagnostika opukholey sredosteniya]. Moscow: Meditsina; 1970. (in Russian)
10. Bale G.F. Teratoma of the neck in the region of the thyroid gland. A review of the literature and report of four cases. *Am. J. Pathol.* 1950; 26 (4): 565—79.
11. Gonzalez-Crussi F. Atlas of Tumor Pathology, Second Series. Washington D.C: Armed Forces Institute of Pathology; 1982; Fascicle 18.
12. Harms D., Zahn S., Göbel U., Schneider D.T. Pathology and molecular biology of teratomas in childhood and adolescence. *Klin. Pädiatr.* 2006; 218 (6): 296—302.
13. Tonni G., De Felice C., Centini G., Ginanneschi C. Cervical and oral teratoma in the fetus: a systematic review of etiology, pathology, diagnosis, treatment and prognosis. *Arch. Gynecol. Obstet.* 2010; 282 (4): 355—61.
14. Geras'in A.V., Mokrushina O.G., Morozov D.A., Akhunzyanov A.A., Gumerov A.A. State and prospects of improvement of surgical newborns with congenital defects. *Rossiyskiy vestnik perinatologii i pediatrii*. 2009; 54 (6): 7—12. (in Russian)
15. Mohanty M.K., Sahu P., Jaiswal A.A., Singal R., Gupta S., Kohli G. et al. A huge immature cervical teratoma. Antenatal diagnosis, and its management. An unusual entity. *J. Clin. Neonatol.* 2013; 2 (1): 42—5.
16. Laje P., Johnson M.P., Howell L.J., Bebbington M.W., Hedrick H.L., Flake A.W. et al. Ex utero intrapartum treatment in the management of giant cervical teratomas. *J. Pediatr. Surg.* 2012; 47 (6): 1208—16.
17. Heerema-McKenney A., Harrison M.R., Bratton B., Farrell J. et al. Congenital teratoma: a clinicopathologic study of 22 fetal and neonatal tumors. *Am. J. Surg. Pathol.* 2005; 29 (1): 29—38.
18. Dement'eva N.A., Surkov D.N. et al. Giant immature neck teratoma with elements of embryonic cancer in premature newborn: Case report and review of the literature. *Neonatologiya, khirurgiya i perinatal'naya meditsina*. 2012; 2 (4): 69—77. (in Russian)
19. Diercks G.R., Iannuzzi R.A., McCowen K., Sadow P.M. Dermoid cyst of the lateral neck associated with the thyroid gland: A case report and review of the literature. *Endocrine Pathol.* 2013; 24 (1): 45—8.
20. Deb M., Mohanty S., Ananthamurthy A., Garg I., Das K. Atypical extragonadal germ cell tumors. *J. Indian Assoc. Pediatr. Surg.* 2012; 17 (1): 9—15.
21. Morozov D.A., Pimenova E.S., Filippova S.I., Shishkanov V.P., Popyl'kova T.V., Tarasova D.S. The surgical management of teratomas in children (multicenter study and analysis of 100 cases). In: *Materials of X Russian Congress "Innovative Technologies in Pediatrics and Pediatric Surgery"*. [Materialy X Rossiyskogo kongressa. Innovatsionnye tekhnologii v pediatrii i detskoj khirurgii]. Moscow; 2011; 397—8. (in Russian)
22. Karavaeva S.A., Garaev V.R., Sorokina I.S., Udalova A.N., Shishkanova O.Yu., Stepanova G.V. Immature neck teratoma in newborn. *Onkokhirurgiya*. 2010; 2 (4): 42—4. (in Russian)

Поступила 15.04.14  
Received 15.04.14