

© М. А. Эсетов

Республиканская
клиническая больница,
Махачкала

ВОПРОСЫ УЛЬТРАЗВУКОВОЙ ДИАГНОСТИКИ КИСТОЗНОЙ ГИГРОМЫ ШЕИ ПЛОДА В ПЕРВОМ ТРИМЕСТРЕ БЕРЕМЕННОСТИ

■ Показана возможность ультразвуковой диагностики кистозной гигромы шеи плода в первом триместре беременности. Проведена оценка распространенности данной патологии в безвыборочной популяции. Проанализированы 32 случая ультразвуковой диагностики этой патологии в 11–14 недель беременности. Частота кистозной гигромы составила 0,44 %.

■ **Ключевые слова:** ультразвуковое исследование; первый триместр беременности; кистозная гигрома; безвыборочное исследование

Введение

Кистозная гигрома (КГ) шеи плода это аномалия лимфатической системы, связанная с нарушением соединения яремного лимфатического мешка и яремной вены, которая формируется на 40-й день гестации [5]. Это один из наиболее частых пороков плода, встречающихся в ранние сроки беременности (обнаруживается у 0,5 % плодов после самопроизвольного выкидыша [24]).

Ультразвуковая диагностика КГ становится возможной после формирования клинической картины нарушения лимфатико-венозного дренажа, проявляющейся в виде кистозных образований, локализующихся в шейно-затылочной области плода, и не представляет существенных трудностей при эхографии.

В то же время, обзор большого количества исследований зарубежных авторов показывает, что есть нерешенные проблемы, связанные с пренатальной диагностикой КГ. Так, если по одним данным прогноз при этом пороке представлен неблагоприятным в 96–98 % случаев независимо от кариотипа плода [13, 21], то по другим предполагается возможность нормального педиатрического исхода при изолированной КГ и нормальном кариотипе у 17–89 % детей [14, 17]. Подчеркивается зависимость исхода от срока проявления порока, пола плода, величины образования, наличия септ, сочетанных пороков и хромосомной аномалии.

В сообщениях, посвященных диагностике КГ шеи, подчеркивается ее частое сочетание с водянкой плода (40–100 %), врожденными пороками сердца (0–92 %) и хромосомными аномалиями (68–75 %) [6].

В отечественной же литературе данная патология представлена в ограниченном количестве работ и в основном в виде отдельных клинических наблюдений [1, 2, 4, 8]. Только в работе О. Л. Галкиной приведен детальный анализ 6 случаев КГ [3]. Наша предыдущая работа была посвящена трансвагинальной эхографической картине данной патологии [11].

Целью настоящего исследования явилась оценка возможности ультразвуковой диагностики и распространенности КГ шеи плода в первом триместре беременности в безвыборочной популяции.

Материал и методы

В отделении пренатальной диагностики республиканской клинической больницы Махачкалы за последние 6 лет ультразвуковое исследование в сроки от 10 до 14 недель (+ 6 дней) беременности было проведено у 4885 пациенток. Общая численность обследованных плодов с учетом выявленных двоен (46 случаев) и неразвивающейся беременности (124 случая) составила 4807. Из них у 32 установлена КГ шеи. При

этом 2457 плодов были обследованы при трансабдоминальном сканировании и 2350 — при трансвагинальном.

Все наши пациентки — жительницы Республики Дагестан. Возраст беременных варьировал от 18 до 42 лет и в среднем составил 29,1 года.

У 4771 ($99,3 \pm 0,1$ %) плода данное исследование было первичным. Почти 87 % беременных не имели определенных показаний для ультразвукового исследования. По поводу отягощенного анамнеза были обследованы примерно 10 % беременных и по поводу осложнений данной беременности — 3 %.

Характеристики 32 пациенток, у которых была выявлена КГ шеи плода, выглядели следующим образом.

Возраст пациенток с КГ плода был в пределах 18–42 лет (в среднем 27,2 лет). При этом только у четырех пациенток он превышал 35 лет. Соматический анамнез у беременных не отягощен. Профессиональных факторов риска у супружеских пар нет. Брак в 5 (16,6 %) случаях близкородственный (муж двоюродный брат). У деверы одной беременной синдром Дауна.

У 71,9 % пациенток с КГ шеи плода предстоящие роды были повторными. При этом отягощенный акушерский анамнез отмечен только у 7 из 32 ($21,9 \pm 7,3$ %) пациенток. У трех из них при предыдущей беременности были врожденные пороки развития (КГ, внутренняя гидроцефалия и спинно-мозговая грыжа). Две женщины имели в анамнезе привычное невынашивание и по одной мертворождение в 28 недель и первичное бесплодие 2,5 года.

Ультразвуковое исследование проводилось на приборах АЛОКА 1700 (Япония) с трансабдоминальным датчиком 3–5 МГц и Sonoace-3200 (Южная Корея), оснащенном вагинальным датчиком с частотой 6,5 МГц. Все исследования проведены автором.

Гестационный возраст калькулировался от первого дня последней менструации. При отсутствии данных или когда разница между менструальным и ультразвуковым сроком составляла более 7 дней, беременность была датирована по копчико-теменному размеру.

Ультразвуковое исследование плода в ранние сроки беременности проводилось соответственно рекомендациям Российской ассоциации врачей ультразвуковой диагностики и руководству The Fetal Medicine Foundation.

Итогом каждого ультразвукового исследования в ранние сроки беременности являлся принятый в республике протокол ультразвукового исследования в 10–14 недель для трансабдоминального и трансвагинального методов, согласно которому во

всех случаях проводилась детальная оценка фетальной анатомии.

Диагноз КГ устанавливался при выявлении кистозного образования в шейно-затылочной области при сканировании в различных срезах. Случаи увеличения толщины воротникового пространства без кистозных образований были исключены из анализа.

Для оценки размеров проводилось измерение максимальных диаметров гигромы в трех различных срезах, после чего использовалась формула вычисления объема эллипса ($V = a \times b \times c \times 0,523$, где a , b и c — измеренные размеры). В случаях билатерального образования, объем был получен сложением объема каждого образования в отдельности.

Для обработки полученных данных использовались электронные таблицы программы Excel 7.0 Microsoft Windows с оценкой средней величины и 95 % доверительного интервала (ДИ). Сравнение результатов проводилось методом вариационной статистики для малых выборок с учетом критерия Стьюдента для расчета 95 и 99 % достоверности (соответственно, при $p < 0,05$ и $p < 0,01$).

Цитогенетическое исследование было проведено в трех случаях. Патологоанатомическое исследование не проводилось.

Результаты

В результате анализа протоколов ультразвукового исследования 4807 плодов, проведенного в сроки 10–14 недель беременности, были идентифицированы 32 (0,67 %) случая КГ шеи. При этом 17 случаев КГ шеи плода были выявлены при трансвагинальном сканировании, а 15 — при трансабдоминальном.

Из них 11 ($34,4 \pm 8,4$ %) пациенток были направлены к нам из различных учреждений республики на уточнение диагноза и пренатальное консультирование. Таким образом, с учетом только случаев первичной диагностики данной патологии, частота выявления КГ шеи плода при ультразвуковом исследовании в первом триместре беременности в исследуемой популяции составила $0,4 \pm 0,1$ % (21 из 4771).

Во всех случаях диагноз КГ был установлен при первом ультразвуковом исследовании в сроки обращения беременной. Так, в 11–11 (+ 6) недель беременности диагностированы два случая КГ, в 12–12 (+ 6) недель — четырнадцать, в 13–13 (+ 6) — десять и в 14–14 (+ 6) — шесть.

В 17 ($53,1 \pm 8,8$ %) наблюдениях диагноз КГ был установлен при проведении ряда дополнительных поперечных и фронтальных эхографических сечений области шеи плода, после получения картины расширения ворот-



Рис. 1. Беременность 11 недель (+ 5 дней). Трансвагинальная эхограмма, поперечный срез. Двусторонняя кистозная гигрома (стрелки)



Рис. 2. Беременность 14 недель. Трансвагинальная эхограмма, поперечный срез. Картина многокамерной кистозной картины (стрелками отмечены септы)

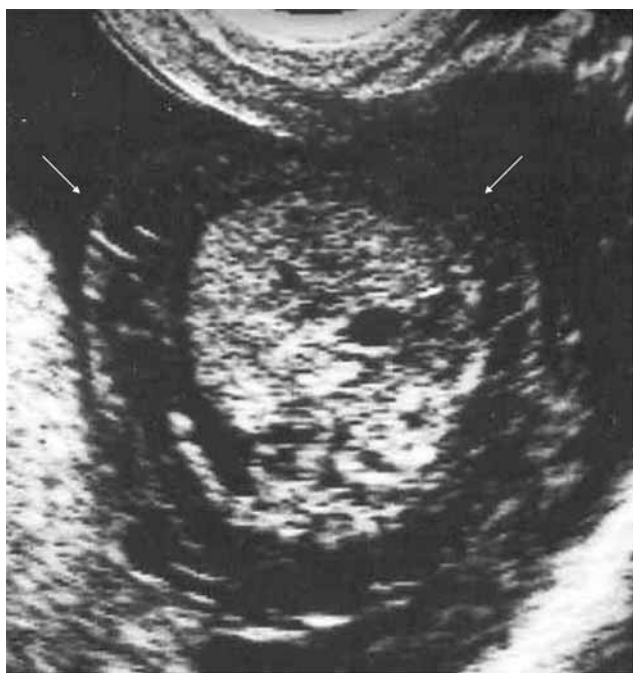


Рис. 3. Беременность 13 (+ 6 дней) недель. Трансвагинальная эхограмма, поперечный срез брюшной полости. Отражена картина отека подкожной клетчатки (стрелки)

никового пространства до 4–7 мм. При этом в шести случаях были выявлены двусторонние кистозные образования (рис. 1), а в остальных

наличие перегородок в структуре воротничкового образования. В восьми из этих наблюдений в стандартном сагиттальном срезе полученное изображение было идентично простому расширению воротничкового пространства. Объем КГ шеи плода в этой группе в среднем составил 179 мм³ (95 % доверительный интервал 108–250 мм³). Девять из этих случаев были диагностированы в результате трансвагинального сканирования.

У остальных плодов патология была выражена в виде одного или нескольких кистозных образований в затылочной области. Основным диагностическим признаком в этих наблюдениях было то, что в сагиттальном срезе картина гигромы шеи у всех этих плодов была идентичной и имела вид локального кистозного выбухания в области воротничкового пространства. При этом в 12 случаях оно имело вид многокамерного (рис. 2), а в трех — однокамерного образования. Объем КГ шеи плода в этой группе равнялся в среднем 1236 мм³ (95 % доверительный интервал 698–1774 мм³).

В 20 (62,5 ± 8,6 %) случаях с КГ у плодов имелись признаки водянки, которые выражались в отеке подкожной клетчатки от 2 до 8 мм (рис. 3). При этом в двух случаях были выявлены также асцит и гидроторакс.

Кроме того, в нашем исследовании у 14 (25 %) плодов с КГ были выявлены сочетанные пороки



Рис. 4. Беременность 14 (+ 6 дней) недель. Трансабдоминальная эхограмма, поперечный срез. Отражена картина воротникового образования с наличием перегородок (стрелки)

развития и эхографические маркеры хромосомных аномалий. При этом у восьми плодов в 12–14 недель беременности были установлены большие пороки развития (эктопия сердца, голопрозэнцефалия, мегацистис, обструкция толстого кишечника, омфалоцеле, асцит, гидроторакс, выраженная скелетная дисплазия). Все данные случаи зафиксированы на эхограммах, причем некоторые были представлены в печати нами ранее в виде отдельных наблюдений [9, 10].

Цитогенетическое исследование плодов, по согласованию с семьей, удалось провести только в 3 случаях. При этом выявлены по одному случаю трисомии 21, трисомии 13-й и делеции короткого плеча 18-й хромосомы. Во всех этих случаях отмечались сочетанные пороки.

В нашем исследовании при эхографии только в 3 ($9,4 \pm 5,2\%$) случаях была констатирована изолированная КГ без признаков водянки. Во всех случаях в структуре были септы. В двух случаях из них в 11 недель (+ 5 дней) и 12 недель (+ 5 дней) с объемом гиомы соответственно 704 мм^3 и 932 мм^3 беременности были прерваны по решению родителей. В третьем — в 14 недель (+ 6 дней) при изолированной гиоме (рис. 4) объемом 179 мм^3 и у плода мужского пола отмечено спонтанное разрешение образования, установленное при повторных наших исследованиях в 22 и 29 недель беременности. Проследить исход беременности, к сожалению, не удалось в связи с потерей связи с пациенткой.

В остальных 31 случае диагностики КГ шеи плода в первом триместре беременности были прерваны по решению семей.

Обсуждение

По данным литературы частота КГ шеи плода оценивается равной $0,5\%$ у абортусов [5–7]. По результатам работ, посвященных ультразвуковой диагностике КГ шеи плода в сроки 10–15 недель беременности частота этой патологии составила $0,4\%$ (167 из 40 086 случаев) [16, 18, 23].

Полученные нами данные распространенности ($0,44\%$) КГ шеи плода коррелируют с литературными данными и, наверное, могут отражать в определенной мере популяционную частоту этой патологии на ранних сроках, так как характеристики нашего исследования (все пациентки жительницы Дагестана, у $99,3\%$ из них УЗИ было первичным, а у 87% оно было проведено без определенных показаний) позволяют оценить ее как безвыборочную. Но нужно учитывать, что оно проведено на основе только данных эхографии и на базе республиканской клинической больницы. С другой стороны, с учетом отсутствия патологоанатомического исследования абортусов, отсутствия массового скрининга беременных в ранние сроки, получение других объективных данных о частоте КГ в регионе на сегодняшнем этапе не является реальным.

Диагностика КГ становится возможной после формирования эхографической картины нарушения лимфатико-венозного дренажа. В нашей практике подавляющее большинство случаев (75%) этой патологии были установлены в 12–13 недель беременности.

Эхографическая картина КГ шеи плода в первом триместре беременности, в зависимости от степени выраженности морфологических изменений, была различной. Так диагноз не представлял трудностей при получении изображения явных кистозных образований в шейно-затылочной области плода. Но в ряде случаев (8 плодов), при картине расширения воротникового пространства до 4–7 мм в стандартном сагиттальном сечении, только проведение ряда дополнительных поперечных и фронтальных эхографических сечений области шеи плода позволило дифференцировать КГ.

В связи с тем, что практически во всех случаях (за исключением одного) в нашем исследовании, по решению семей, беременности были прерваны после первичной диагностики КГ, у нас не было возможности проведения ультразвуковых исследований в динамике для оценки прогностических факторов исхода для плода. Также для пренатального консультирования мы не могли опираться на данные цитогенетического анализа, который был

проведен всего в трех случаях (во всех случаях отмечена хромосомная аномалия).

Высокая частота хромосомных нарушений при КГ шеи плода, достигающая по данным литературы, 36–76 % [3, 12–15, 17, 18, 20, 23] является основанием для пренатального кариотипирования плодов с этой патологией, что позволило бы в большинстве случаев определиться с тактикой ведения беременности.

На что же мы опирались при пренатальном консультировании семей с КГ шеи плода при отсутствии данных цитогенетического анализа?

Кроме хромосомных аномалий, отягощающими исход для плода факторами при КГ считается наличие у него сочетанных пороков развития.

Даже при нормальном кариотипе плода с КГ в 30–34 % случаев отмечается наличие больших пороков развития [16, 22]. При этом наиболее частыми являются пороки развития сердца. Так и в нашем исследовании у 14 (43,8 %) плодов с КГ были выявлены дополнительные отягощающие факторы. Из которых у 8 отмечены выраженные признаки нарушения развития. При этом в 7 случаях в первом триместре сделать окончательный вывод о наличии сочетанной патологии нам позволило применение трансвагинальной эхографии.

Еще одним из пренатальных факторов, существенно ухудшающих прогноз при КГ, является водянка плода. Так, К. Ogita et al. [19] приводят данные о 100%-й смертности плодов с водянкой даже без хромосомных аномалий и врожденных пороков развития.

Как показали результаты нашей работы, различные признаки водянки при ультразвуковом исследовании отмечены у 20 (62,5 ± 8,6 %) плодов. Этиопатогенез КГ предполагает возможность возникновения периферической лимфедемы и неиммунной водянки плода при прогрессировании расширения венозных ветвей лимфатических сосудов [5].

В исследовании P. Rossati, L. Guariglia [22] прогностически неблагоприятным признаком принят объем КГ, превышающий 75 мм³, и особенно при наличии септ. В этой работе чувствительность и специфичность сочетания этих признаков в отношении неблагоприятного исхода беременности составила 100 и 92 %. Такого же характера данные получены и другими исследователями, которые отмечают неблагоприятный исход для плода при наличии септ до 96–98 % случаев [21, 23]. Причем А. Paoloni-Giacobino et al. [21] выявили при этом неблагоприятный исход независимо от кариотипа плода.

В нашей работе в 29 (90,6 ± 5,2 %) случаях объем КГ существенно превышал 75 мм³ ($P < 0,01$), и в 10 (31,2 ± 8,2 %) было отмечено наличие септ при оценке КГ.

Случаи благоприятного исхода, как показывает анализ литературных данных, были отмечены у плодов с изолированной простой (без наличия септ) КГ шеи и нормальном кариотипе. При этом подчеркивается возможность нормального педиатрического исхода для 34–85 % плодов [4, 21]. В то же время подчеркивается, что при КГ, в отличие от других врожденных пороков развития, отмечается высокая (47–60 %) частота хромосомных аномалий даже при ее изолированной форме [7, 14, 17].

Но, говоря о благоприятном исходе, стоит обратить внимание на результаты E. S. Howarth et al. [20], которые приводят данные, что из 6 новорожденных с благоприятным исходом родов только у одного ребенка не было педиатрических проблем (один был оперирован, а 4 умерли в течение последующих 5 лет). К. Ogita et al. [19] описали два случая, когда дети с большими изолированными КГ умерли в возрасте 6 месяцев и 3 лет от кровотечения из опухоли.

В нашем исследовании в двух случаях диагностики изолированной КГ без признаков водянки были неблагоприятные факторы (большой объем и наличие септ). В то же время, имевший место случай разрешения гигромы при прогрессировании беременности, хотя мы и не смогли получить данных об исходе, и не было результатов цитологического исследования, показывает необходимость дифференцированного подхода при пренатальном консультировании пациенток с КГ шеи плода.

Таким образом, в представленном нами исследовании в 29 (90,6 %) случаях диагностики КГ шеи плода отмечались дополнительные ультразвуковые признаки, позволяющие предполагать неблагоприятный исход беременности.

Проведенная работа и анализ литературы позволяют сделать ряд следующих выводов:

- высокая частота и неблагоприятный прогноз для плода являются факторами, требующими ранней пренатальной диагностики данной патологии;
- оптимальными сроками наиболее ранней пренатальной диагностики КГ шеи плода при ультразвуковом исследовании являются 12–13 недель беременности;
- применение трансвагинальной эхографии при наличии КГ шеи плода является необходимым дополнительным методом исследования для корректного решения вопросов пренатального консультирования;
- применение при эхографии ряда дополнительных поперечных и фронтальных сечений области шеи плода позволяет провести дифференциальную диагностику между расширением ворончатого пространства и КГ.

Литература

1. Вишневская Ю. Г. Пренатальная диагностика кистозной гигоммы в 11–12 недель беременности / Вишневская Ю. Г. // Ультразвук. диагн. акуш. гин. педиат. — 2000. — № 4. — С. 301–303.
2. Возможности пренатальной диагностики синдрома Шерешевского–Тернера и синдрома Ульриха–Нунана / Веропотвелян Н. П., Веропотвелян П. Н., Кодунов Л. А. [и др.] // Вопр. охр. мат. дет. — 1992. — Т. 37, № 6–7. — С. 5–10.
3. Галкина О. Л. Пренатальная диагностика кистозной гигоммы: клинические наблюдения / Галкина О. Л. // Пренат. диагн. — 2003. — Т. 2, № 4. — С. 279–282.
4. Дорошенко Д. В. Случай ультразвуковой диагностики кистозной гигоммы шеи плода как маркера синдрома Тернера / Дорошенко Д. В., Тарасова Т. Д., Вербовская Е. С., Ибрагимова Т. А. // Пренат. диагн. — 2003. — Т. 2, № 1. — С. 46–49.
5. Пренатальная диагностика врожденных пороков развития плода: пер. с англ. / Ромеро Р., Пилу Дж., Дженти Ф. [и др.]; пер. с англ. М. В. Медведева. — М.: Медицина, 1994. — 448 с.
6. Пренатальная эхография / Алтынник Н. А., Волков А. Е., Гусева О. И. [и др.]; Ред. М. В. Медведева. — 1-е изд. — М.: Реальное Время, 2005. — 560 с.
7. Снайдерс Р. Дж. М. Ультразвуковые маркеры хромосомных дефектов плода: пер. с англ. / Снайдерс Р. Дж. М., Николаидес К. Х.; пер. с англ. М. В. Медведева и А. В. Михайлова. — М.: Видар, 1997. — 192 с.
8. Стыгар А. М. Пренатальная ультразвуковая диагностика патологии лимфатической системы плода / Стыгар А. М. // Ультразвук. диагн. акуш. гин. педиат. — 1994. — № 3. — С. 31–39.
9. Эсетов М. А. Мегацистис плода в 1-м триместре беременности: случаи трансвагинальной ультразвуковой диагностики и обзор литературы / Эсетов М. А. // Пренат. диагн. — 2005. — Т. 4, № 3. — С. 186–190.
10. Эсетов М. А. Случай диагностики торакоабдоминальной эктопии сердца плода в сочетании с экстракардиальными аномалиями в 1-м триместре беременности / Эсетов М. А., Гаджиева А. Б., Паштаева М. И. // Пренат. диагн. — 2004. — Т. 3, № 3. — С. 218–220.
11. Эсетов М. А. Трансвагинальная эхографическая диагностика кистозной гигоммы шеи плода в 11–14 нед. беременности / Эсетов М. А. // Пренат. диагн. — 2006. — Т. 5, № 2. — С. 117–120.
12. Юдина Е. В. Роль эхографии в формировании показаний к пренатальному кариотипированию / Юдина Е. В. // Ультразвук. диагн. — 1998. — № 1. — С. 42–50.
13. Du J. Prenatal diagnosis of fetal nuchal cystic hygroma in 22 cases / Du J., Qu L., Guo S. // Zhonghua Fu Chan Ke Za Zhi. — 1997. — Vol. 32, N 7. — P. 425–427.
14. First-trimester simple hygroma: cause and outcome / Johnson M. P., Johnson A., Holzgreve W. [et al.] // Am. J. Obstet. Gynecol. — 1993. — Vol. 168, N 1. — P. 156–161.
15. First trimester diagnosis of cystic hygromata using transvaginal ultrasound and cytogenetic evaluation / Podobnik M., Singer Z., Podobnik-Sarkanji S. [et al.] // J. Perinat. Med. — 1995. — Vol. 23, N 4. — P. 283–291.
16. First-trimester septated cystic hygroma: prevalence, natural history, and pediatric outcome / Malone F. D., Ball R. H., Nyberg D. A. [et al.] // Obstet. Gynecol. — 2005. — Vol. 106, N 2. — P. 288–294.
17. High frequency of cytogenetic abnormalities in fetuses with cystic hygroma diagnosed in the first trimester / Shulman L. P., Emerson D. S., Felker R. E. [et al.] // Obstet. Gynecol. — 1992. — Vol. 80, N 1. — P. 80–82.
18. Natural history and outcome of prenatally diagnosed cystic hygroma / Ganapathy R., Guven M., Sethna F. [et al.] // Prenat. Diagn. — 2004. — Vol. 24, N 12. — P. 965–968.
19. Ogita K. Outcome of fetal cystic hygroma and experience of intrauterine treatment. Review / Ogita K., Suita S., Taguchi T. // Fetal Diagn. Ther. — 2001. — Vol. 16, N 2. — P. 105–110.
20. Population-based study of the outcome following the prenatal diagnosis of cystic hygroma / Howarth E. S., Draper E. S., Budd J. L. [et al.] // Prenat. Diagn. — 2005. — Vol. 25, N 4. — P. 286–291.
21. Pregnancy outcome of 30 fetuses with cystic hygroma diagnosed during the first 15 weeks of gestation / Paoloni-Giacobino A., Extermann D., Extermann P. [et al.] // Genet. Couns. — 2003. — Vol. 14, N 4. — P. 413–418.
22. Rosati P. Prognostic value of ultrasound findings of fetal cystic hygroma detected in early pregnancy by transvaginal sonography / Rosati P., Guariglia L. // Ultrasound Obstet. Gynecol. — 2000. — Vol. 16. — P. 245–250.
23. Second-trimester cystic hygroma: prognosis of septated and nonseptated lesions / Brumfield C. G., Wenstrom K. D., Davis R. O. [et al.] // Obstet. Gynecol. — 1996. — Vol. 88, N 6. — P. 979–982.
24. The significance of cystic hygroma in fetuses / Byrne J., Blank W. A., Warburton D. [et al.] // Hum. Pathol. — 1984. — Vol. 15. — P. 61–67.

Статья представлена Е. И. Кривцовой
НИИ акушерства и гинекологии им. Д. О. Отта,
Санкт-Петербург

THE QUESTIONS OF ULTRASOUND DIAGNOSTIC OF CYSTIC HYGROMA IN THE FIRST TRIMESTER OF PREGNANCY

Esetov M. A.

■ **Summary:** The estimation of prevalence at the early prenatal diagnostics of the foetus neck cystic hygroma in the nonselective population. The 32 occasions of ultrasound diagnostic of this pathology in 11–14 weeks analyzed. The frequency of cystic hygroma comprised 0,44 %.

■ **Key words:** cystic hygroma; first trimester; ultrasound study; nonselective population