

Proteza wprowadzona do jamy opłucnowej po resekcji płuca imitująca guz nowotworowy – opis przypadku

Prosthesis implanted in pleural cavity post pneumonectomy imitating neoplastic tumor – case report



Jarosław Religioni, Tadeusz Orłowski

Klinika Chirurgii, Instytut Gruźlicy i Chorób Płuc, Warszawa

Kardiochirurgia i Torakochirurgia Polska 2006; 3 (3): 295–298

Streszczenie

Poniżej przedstawiono przypadek 57-letniego chorego z rozpoznaniem wstępnie olbrzymim guzem prawej jamy opłucnowej. Ostatecznie okazało się, że opisywana zmiana była protezą wszczepioną po resekcji płuca, wykonanej z powodu gruźlicy przed 47 laty.

Słowa kluczowe: guzy opłucnej, zespół postpneumonektomijny.

Diagnostyka guzów opłucnej w erze powszechnie dostępnych badań obrazowych zazwyczaj nie nastręcza dużych trudności. Mogą się one wywodzić z tkanek miękkich, z międzybłonna lub z innych struktur [1]. Możliwe jest określenie rodzaju zmiany, jej stosunku do narządów śródpiersia i ściany klatki piersiowej, naciekania bądź nie miększu płucnego. W celu weryfikacji histologicznej powszechnie stosuje się zabieg biopsji igłowej transtorakalnej pod kontrolą RTG, USG czy tomografii komputerowej. W przypadkach ocenianych klinicznie jako nieoperacyjne, gradacja procedur diagnostycznych (mediastinotomia, wideotorakoscopia, torakotomia diagnostyczna) pozwala zazwyczaj na ustalenie etiologii choroby. Problemem pozostaje jednak sytuacja, gdy tymi metodami nie możemy przybliżyć się do określenia typu histologicznego zmiany. Tym bardziej, w takich właśnie przypadkach, decyzja dotycząca próby radykalnej resekcji budzi wątpliwości.

Opis przypadku

W Klinice Chirurgii Instytutu Gruźlicy i Chorób Płuc w Warszawie hospitalizowano 57-letniego chorego z olbrzymim guzem zajmującym prawą jamę opłucnową i przemieszczającym śródpiersie. Przy przyjęciu pacjent w stanie ogólnym średnio ciężkim, z objawami zespołu żyły głównej górnej. Chory z rozedmą i przewlekłym zapaleniem oskrzeli.

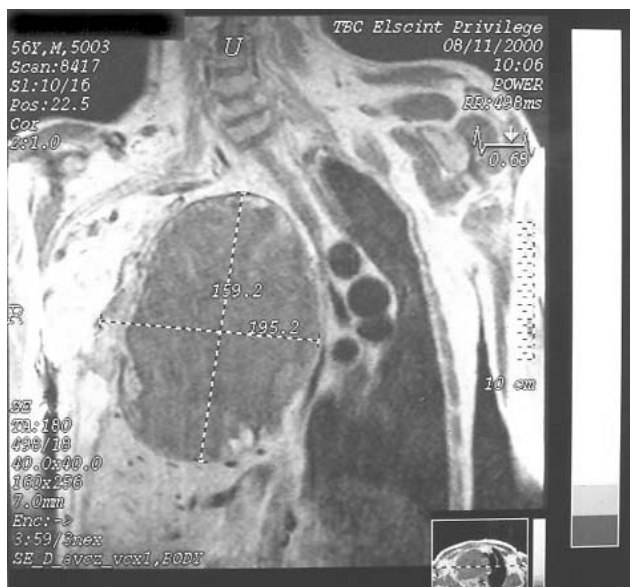
Abstract

We present the case of a 57-year-old patient with a huge tumour of the right pleura. The patient had been operated on due to TBC 47 years ago. During thoracotomy the lesion turned out to be an implanted surgical prosthesis.

Key words: pleural tumours, postpneumonectomy syndrome.

Z wywiadu wynikało, iż przed 47 laty pacjent miał wykonaną prawostronną pneumonektomię z powodu gruźlicy. Nie było dokumentacji lekarskiej z tego okresu. Od czasu operacji chory bez istotnych dolegliwości. Na 6 mies. przed przyjęciem do naszego szpitala pacjent zauważył zmniejszenie się tolerancji wysiłku. Pojawił się obrzęk szyi i górnej połowy klatki piersiowej. Chory skierowany został do szpitala w miejscu zamieszkania. Tam w tomografii komputerowej stwierdzono obecność guza zajmującego prawą jamę opłucnową, przemieszczającego śródpiersie z uciskiem żyły głównej górnej, tchawicy i oskrzela głównego lewego. Zmiana miała gładkie obrysy, ze zwapnieniami na obwodzie. Struktura wewnątrz była niejednorodna. Ku dołowi guz sięgał do wątroby, z możliwością jej nacieku. Biopsja transtorakalna nie pozwoliła na ustalenie rozpoznania, wobec czego pacjenta zakwalifikowano do torakotomii zwiadowczej w rejonowym oddziale torakochirurgii. Zrezygnowano z próby resekcji w związku z zaawansowaniem miejscowym choroby traktowanej jako proces nowotworowy i złym stanem ogólnym. Badanie histologiczne pobranych wycinków wykazało przewlekłe zapalenie z obfitym włóknieniem i szklawieniem, wylewy krwi oraz ogniska martwicy. Utkania nowotworowego nie znaleziono. W związku z trudnościami w ustaleniu etiologii choroby i pogarszaniem się stanu ogólnego, pacjenta skierowano do naszego szpitala. Jak zaznaczono powyżej,

Adres do korespondencji: Jarosław Religioni, Instytut Gruźlicy i Chorób Płuc, Klinika Chirurgii, ul. Płocka 26, 01-138, Warszawa, tel. +48 22 431 22 66, +48 22 431 22 00, e-mail: j.religioni@igichp.edu.pl



Ryc. 1. Rezonans magnetyczny klatki piersiowej



Ryc. 2. Rezonans magnetyczny klatki piersiowej

przy przyjęciu stan chorego był średnio ciężki. Stwierdzono nasilony zespół żyły głównej górnej z obrzękiem obu kończyn górnych. Uwagę zwracał współistniejący masywny odczyn zapalny skóry i tkanki podskórnej w tej okolicy. Pacjent miał objawy niewydolności krążeniowo-oddechowej z tachykardią rzędu 120/min i dusznością spoczynkową z hiperkapnią. W mechanice oddychania stwierdzano znacznego stopnia restrykcję, z widoczną również obturacją i zwiększonym oporem w przepływie powietrza. Wartości bezwzględne dla powyższych parametrów wynosiły: FVC 0,88 l (22,3% normy), FEV¹ 0,56 l (17,8% normy), R 1,63 (543,9% normy). Po zastosowaniu leczenia odwadniającego i przeciwzakrzepowego uzyskano znaczącą poprawę stanu ogólnego ze

zmniejszeniem się objawów zastoju ze strony żyły głównej górnej. Opierając się na wykonanych uprzednio badaniach, zdecydowano o konieczności rozszerzenia diagnostyki. Zlecono ultrasonografię klatki piersiowej, jamy brzusznej, serca. Wykonano bronchoskopię. Badania te nie pozwoliły na sprecyzowanie rozpoznania. Potwierdzono w nich natomiast obecność litej masy w prawej opłucnej, uciskającej przeponę, powiększenie prawej komory serca z jej przeciążeniem, nadciśnienie płucne (TVPG maksymalnie 68 mmHg, AcT 77 ms), znaczne zwężenie tchawicy w wymiarze poprzecznym bez zmian w śluzówce. Biorąc pod uwagę dotychczas przeprowadzone działania mające na celu ustalenie etiologii choroby, zakończone niepowodzeniem, wykonano rezonans magnetyczny klatki piersiowej. Uwidoczniono w nim obecność olbrzymiej masy w komorze poresekcyjnej (po wykonanej przed laty pneumonektomii). Wymiary guza wynosiły 20 x 16 x 15 cm. Jego struktura była niejednorodna, z obszarami włóknienia i rozpadu wewnątrz. Stwierdzono cechy naciekania ściany klatki piersiowej od bocznej strony. Narządy śródpiersia były przemieszczone i uciśnięte. Podobnie uciśnięta i przemieszczona ku dołowi była przepona. Nie stwierdzono jednakże naciekania struktur śródpiersia. Węzły chłonne śródpiersiowe nie były powiększone. Obraz radiologiczny mógł sugerować *fibroma* lub *fibrosarcoma* (ryc. 1 i 2.). Biorąc pod uwagę czynniki ryzyka, lecz nie znajdując alternatywnego sposobu leczenia, zdecydowano się zakwalifikować pacjenta do operacji. Wykonano torakotomię tylnoboczną (po raz trzeci po tej stronie). W trakcie otwierania klatki piersiowej stwierdzono dużą retrakcję żeber z ich odcinkową destrukcją. Aby dotrzeć do jamy opłucnowej, konieczna była odcinkowa resekcja czterech żeber (od 4. do 7.). Działania te pozwoliły na dotarcie do zasadniczej zmiany. Na powierzchni guza znaleziono szwy po poprzedniej torakotomii. Nie było warstwy pozwalającej na odpreparowanie zmiany od ściany klatki piersiowej, nie było też granicy z przeponą. W związku z tym zaistniała konieczność otwarcia otrzewnej, co pozwoliło na stopniowe oddzielenie guza od przepony. Z trudem wypreparowano zmianę od ściany klatki piersiowej i od struktur śródpiersia (ryc. 3.). Ostatecznie udało się usunąć w całości guz z pola operacyjnego. Po przecięciu go stwierdzono, iż jest to worek polietylenowy wypełniony paskami foliowymi, otoczony z zewnątrz masami tkankowymi o grubości ok. 3 cm (ryc. 4.). Został on wprowadzony do komory poresekcyjnej przed 47 laty. Z wywiadu przeprowadzanego z pacjentem przy przyjęciu nie uzyskano jednak takich informacji. Dodatkowym czynnikiem, który uniemożliwił wstępne ustalenie tego faktu, był brak dokumentacji lekarskiej z hospitalizacji podczas wykonanego w przeszłości zabiegu usunięcia płuca. W okresie okołoperacyjnym, ze względu na niewydolność krążeniowo-oddechową, chory wymagał przedłużonej intubacji z zastosowaniem oddechu wspomaganego oraz ciągłego wlewu katecholamin (ryc. 5.). Przetaczano też krew i osocze. Diureza stymulowana była dopaminą i diuretykami. W 3. dobie po zabiegu wystąpiło pogorszenie kontaktu logicznego. Rozpoznano niedokrwienie mózgu, najprawdopodobniej w okolicy czoło-

wej. Badaniami obrazowymi (tomografia komputerowa i rezonans magnetyczny) nie stwierdzono jednak uchwytnej patologii w zakresie mózgowia. W 5. dobie po zabiegu pacjent został ekstubowany. Zwracało uwagę spowolnienie psychoruchowe. Konsultacja neuropsychiatryczna wykazała zaburzenia procesów poznawczych. W wyniku zastosowanego leczenia farmakologicznego, rehabilitacji ogólnousprawniającej i terapii neuropsychiatrycznej uzyskano w ciągu 3 tyg. stopniową poprawę stanu ogólnego, co pozwoliło na wypisanie pacjenta z oddziału.

Dyskusja

Przedstawiony przypadek nastroczał poważne trudności diagnostycznych przed ostatecznie przeprowadzonym radykalnym leczeniem operacyjnym. Nie mieliśmy możliwości uzyskania od pacjenta ani jego rodziny wiarygodnych informacji na temat przeprowadzonej w dzieciństwie operacji. Dotarcie do dokumentacji lekarskiej sprzed blisko 50 lat nie powiodło się. Ze względu na rozmiary guza i brak innych ognisk chorobowych na wstępie wykluczono, że zmiana ma charakter przerzutowy. Najbardziej prawdopodobne wydawało się, iż nieprawidłowa masa położona w komorze presekcyjnej jest pierwotnym guzem jamy opłucnowej. Nowotwory te można podzielić, zgodnie z ich zachowaniem, na łagodne, o małej złośliwości i na złośliwe.

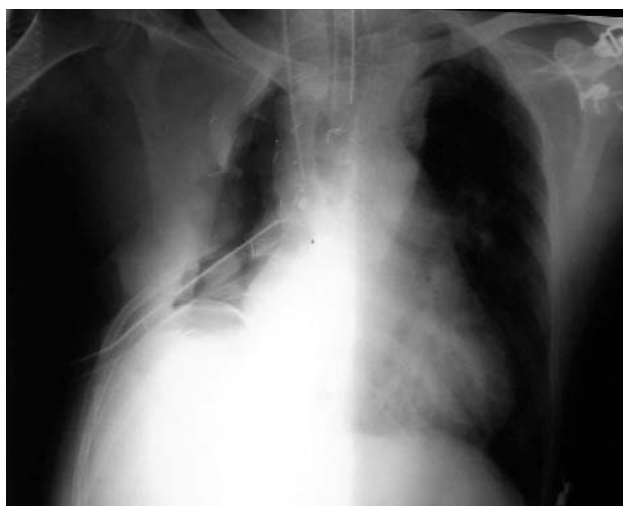
Do grupy pierwszej zalicza się: *solitary fibrous tumor*, ogniskowe zgrubienie opłucnej (*nodular pleural plaque*), tłuszczaka, guz adenomatoidalny, guz włóknisty, pojedynczą torbiel mezotelialną, wielotorbielowatego międzybłoniaka i nerwiaka. Do grupy o małej złośliwości zalicza się: grasiczka opłucnowego, dobrze zróżnicowanego międzybłoniaka brodawkowatego i guz włóknisty. Wreszcie w grupie trzeciej znajdują się: *malignant solitary fibrous tumor*, międzybłoniak w postaci rozlanej lub zlokalizowanej, guz włóknisty zbudowany z małych, okrągłych komórek, guz Askina, opłucnowo-płucny *blastoma*, tłuszczakomięsak, włókniakomięsak, mięsak synowialny i mięsak naczyniowy [2]. Kierując się natomiast nie stopniem złośliwości, lecz budową histologiczną i punktem wyjścia procesu chorobowego, brano pod uwagę, iż opisywany guz mógł być pierwotnym nowotworem wywodzącym się z tkanek miękkich, takim jak *localised fibrous tumor*, włókniak, mięsak, śródbłoniak naczyń krwionośnych, chrząstniak. Rozważano też możliwość, iż opisywana patologiczna masa odpowiada nowotworom wywodzącym się z międzybłonka, takim jak międzybłoniak złośliwy czy łagodny guz adenomatoidalny. Analizowano również inną grupę nowotworów opłucnej wg klasyfikacji WHO, określaną jako *miscellaneous tumors*, do której zalicza się m.in.: odpryskowiaka, naczyniaka sklerotycznego czy potworniaka [1]. Obraz kliniczny wskazywał, iż guz ma charakter przynajmniej miejscowo złośliwy. Przemawiały za tym olbrzymie wymiary zmiany, naciekanie ściany klatki piersiowej, kompresyjny wzrost i rozpad wewnątrz guza. Z drugiej strony nie stwierdzono zmian przerzutowych w innych narządach, nie było cech naciekania struktur śródpiersia, nie były też powiększone okoliczne węzły chłonne. Pacjent nie skarżył się na dolegliwości bólowe w klatce piersiowej. Fakty te mogły przema-



Ryc. 3. Zdjęcie śródoperacyjne



Ryc. 4. Zdjęcie śródoperacyjne



Ryc. 5. Zdjęcie prześwietlenia klatki piersiowej, pooperacyjne

wiać za łagodnym charakterem zmiany. Najbardziej prawdopodobne było, iż mamy do czynienia z *fibrosarcoma* lub *fibroma*. W diagnostyce różnicowej brano też pod uwagę międzybłoniaka, który jest najczęstszym nowotworem pierwotnym

powstającym w opłucnej. Argumenty za i przeciw takiemu rozpoznaniu były podobne, jak przy rozważaniach kwalifikujących guz do grupy nowotworów wywodzących się z tkanek miękkich. W wypadku międzybłoniaka o tak dużych rozmiarach należałoby zakwalifikować go do złośliwej postaci rozlanej. Tu jednak nie stwierdzono cech naciekania struktur otaczających zmianę ani powiększonych węzłów chłonnych czy cech przerzutów. Świadczyło to przeciwko temu rozpoznaniu. Postacie o mniejszej złośliwości, takie jak dobrze zróżnicowany międzybłoniak brodawkowaty czy wielotorbielowaty, mogły być bardziej prawdopodobne. Przemawiał za tym charakterystyczny dla tych rodzajów nowotworów wieloletni bezobjawowy przebieg choroby. Nie występuje też w tych postaciach rozległy naciekanie na opłucną. Ostatecznie, wobec braku rozpoznania, nie znajdując alternatywnego sposobu leczenia, zdecydowano się na próbę radykalnej resekcji. Z punktu widzenia technicznego operacja pozwoliła na całkowite usunięcie patologicznej masy, która, jak opisano wyżej, okazała się protezą wszczepioną po pneumonektomii.

Traktując to jako ciekawostkę, można wspomnieć, iż wg danych historycznych pierwszą operację wprowadzenia protezy po usunięciu płuca wykonał Hipokrates 2400 lat temu. Brak jednak danych, co do wyniku [7]. Rutynowo nie stosowano tego typu zabiegów aż do lat 50. XX wieku. Wtedy częstsze stały się przypadki, gdy usuwano zniszczone płuco w przebiegu gruźlicy u dzieci. Jako powikłanie obserwowano postępującą skoliozę. Występowała ona w związku z większą elastycznością układu kostno-stawowego i wzrostem organizmu [8]. Aby temu zapobiec, zaczęto implantować różnorakie protezy do komory poresekcyjnej. Po raz pierwszy taką metodę leczenia opisał Adams w 1972 r. [4], jednak klasyczny zepół postpneumonektomijny został opisany później przez Wasermana i dotyczył 23-letniego chorego, u którego objawy wystąpiły rok po prawostronnej pneumonektomii [3]. Jest to rzadkie, ale groźne dla życia powikłanie. Częściej występuje po stronie prawej [4]. Dochodzi do przemieszczenia się śródpiersia do pustej komory poresekcyjnej. Serce ulega skręceniu wokół własnej osi, przemieszcza i skręca się tchawica. Prowadzi to do zwężenia, a czasem nawet zamknięcia światła tchawicy i oskrzela głównego po stronie przeciwnej do operowanej. Dochodzi do zwężenia z ucisku tętnicy płucnej strony przeciwnej. Zwężeniu mogą ulec także inne duże naczynia prawej połowy serca. W efekcie może dojść do ostrej niewydolności krążeniowo-oddechowej i zgonu. Wiek XX przyniósł próby mające na celu eliminację tego powikłania.

Stosowano lub nadal stosuje w różnych ośrodkach: wytworzenie odmy opłucnowej w komorze poresekcyjnej, z do-

datnimi ciśnieniami rzędu 5–10 cm słupa wody, drenaż opłucnej ze zmiennym ciśnieniem wewnątrz komory poresekcyjnej pozwalający na fizjologiczne ustawienie się śródpiersia, wprowadzenie kulek polietylenowych w worku plastikowym, przysycie tętnicy płucnej do tchawicy, przecięcie nerwu przeponowego w celu szybszego zmniejszenia komory poresekcyjnej, przysycie worka osierdziowego do ściany klatki piersiowej od przodu, wprowadzenie protez silikonowych (co było wielkim krokiem ze względu na ich elastyczność, dobrą podatność i co za tym idzie – małą liczbę powikłań), czy wreszcie wprowadzenie protez umożliwiających ich stopniowe dopełnianie do pożądaných wartości przez wszczepiony pod skórę port. Wydaje się, że ta metoda jest najwłaściwszym rozwiązaniem. Po pierwsze, śródpiersie może być stopniowo ustawiane w pozycji centralnej poprzez dopełnianie protezy. Po drugie, objętość protezy może być wyjściowo różna w zależności od objętości komory poresekcyjnej. Można ją wreszcie zmieniać wraz ze wzrostem pacjenta (dotyczy to dzieci) [3, 5, 6].

Taka metoda pooperacyjnego wypełnienia jamy opłucnowej, jak w omawianym przypadku, nie była jak dotąd opisywana lub nie udało się nam do takiego opisu dotrzeć. Przez wiele lat po zabiegu stan chorego był dobry, co świadczy o jej skuteczności. Nie obserwowano objawów charakterystycznych dla zespołu postpneumonektomijnego. Pomimo to po wielu latach wystąpiły niespodziewane następstwa, będące, jak się wydaje, nadmiernym odczynem łącznotkankowym wokół wszczepionej protezy. Dzięki zastosowanemu przez nas leczeniu, pomimo przejściowych powikłań w okresie pooperacyjnym, osiągnięto pozytywny efekt końcowy.

Piśmiennictwo

1. Lange D, Zembala E. Nowoczesna diagnostyka histopatologiczna i immunohistochemiczna guzów płuc i opłucnej. *Kardiochirurgia i Torakochirurgia Polska* 2004; 1: 118-124.
2. Granville L, Laga AC, Allen TC, Dishop M, Roggli VL, Churg A, Zander DS, Cagle PT. Review and Update of Uncommon Primary Pleural Tumors. *Arch Pathol Lab Med* 2005; 129: 1428-1443.
3. Mehran RJ. Late complication. Postpneumonectomy syndrome. *Chest Surg Clin N Am* 1999; 9 (3): 655-673.
4. Morrow S, Loretto G, Ashcraft K. Ping-pong ball plombage for right postpneumonectomy syndrome in children. *J Pediatr Surg* 1998; 33 (7): 1048-1051.
5. Audrey G, Balquet A, Vazquez M. Expandable prosthesis in right postpneumonectomy syndrome in childhood and adolescence. *Ann Thorac Surg* 1993; 56: 323-327.
6. Kosloski M, Williamson S. An expandable prosthesis for stabilization of the infant mediastinum following pneumonectomy. *J Pediatr Surg* 1992; 27 (12): 1521-1522.
7. Horowitz MD, Otero M, Thurer RJ, Bolooki H. Late complication of plombage. *Ann Thorac Surg* 1992; 53: 803-806.
8. Stiles Q, Meyer B, Lindesmith G, Jones JC. The effect of pneumonectomy in children. *J Cardiovasc Thorac Surg* 1969; 58 (3): 394-400.