

КЛИНИЧЕСКИЕ СЛУЧАИ ДИАГНОСТИКИ И ЛЕЧЕНИЯ ОПУХОЛЕЙ НАДПОЧЕЧНИКОВ, ОСЛОЖНЕННЫХ РАЗРЫВОМ И ФОРМИРОВАНИЕМ ЗАБРЮШИННОЙ ГЕМАТОМЫ

© С.Л. Непомнящая^{1*}, Е.А. Федоров¹, Л.М. Краснов¹, Д.В. Реброва¹, Ю.В. Семилетова^{1,2}, И.А. Павликова¹, А.Р. Бахтиярова^{1,3}, В.Н. Данилин¹, В.В. Дмитриченко¹, О.В. Кулешов¹, М.А. Алексеев¹, Т.С. Придвижжина¹, О.И. Логинова¹

¹ФГБОУ ВО Санкт-Петербургский государственный университет, Санкт-Петербург, Россия

²ФГБОУ ВО Северо-западный государственный медицинский университет им. И.И. Мечникова, Санкт-Петербург, Россия

³ФГБУ «НМИЦ им. В.А. Алмазова», Санкт-Петербург, Россия

В настоящей работе представлены различные варианты клинического течения осложнений опухолей надпочечников с разрывом и формированием забрюшинных гематом, в зависимости от морфологических характеристик новообразований.

В первом клиническом случае описана пациентка 38 лет с адренокортикальной карциномой левого надпочечника размером до 8 см, осложнившейся разрывом с формированием забрюшинной гематомы объемом 2800 см³, имитирующей гигантскую внеорганную забрюшинную опухоль с анемией и кахексией. После хирургического лечения и стабилизации состояния пациентка направлена на химиотерапию с положительным исходом. Второй случай — о пациентке 21 года с недиагностированной феохромоцитомой, у которой на фоне старта гипотензивной терапии произошел разрыв опухоли с кровоизлиянием, развитием острой симптоматики. После проведенной ретроперитонеоскопической адреналэктомии состояние стабилизировалось. Третий случай — об опыте наблюдения за пациентом 45 лет с миелолипомой до 6,4 см, осложненной ранее перенесенной забрюшинной гематомой, у которого оперативное лечение не проводилось в связи с наличием терминальной стадии хронической болезни почек и стабильным состоянием опухоли.

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА: новообразования надпочечников; инциденталомы; феохромоцитома; осложнения; разрыв опухоли; забрюшинная гематома.

CASE REPORTS OF DIAGNOSIS AND TREATMENT OF ADRENAL TUMORS COMPLICATED BY RUPTURE AND FORMATION OF RETROPERITONEAL HEMATOMA

© Svetlana L. Nepomnyashchaya^{1*}, Elisey A. Fedorov², Leonid M. Krasnov¹, Dina V. Rebrova¹, Yulia V. Semiletova^{1,2}, Irina A. Pavlikova¹, Alyuza R. Bakhtiyarova^{1,3}, Valeriy N. Danilin¹, Vyzcheslav V. Dmitrichenko¹, Oleg V. Kuleshov¹, Michail A. Alekseev¹, Tatyana S. Pridvijkina¹, Olga I. Loginova¹

¹Saint-Petersburg State University, Saint-Peterburg, Russia

²North-Western State Medical University named after I.I. Mechnikov, Saint-Peterburg, Russia

³Almazov National Medical Research Center, Saint-Peterburg, Russia

This article presents different variants of the clinical course of complications of adrenal tumors with rupture and formation of retroperitoneal hematomas, depending on the morphological characteristics of the neoplasms.

The first clinical case described a 38-year-old patient with adrenocortical carcinoma of the left adrenal gland up to 8 cm in size, complicated by rupture with the formation of a retroperitoneal hematoma with a volume of 2800 cm³, simulating a giant extraorgan retroperitoneal tumor with anemia and cachexia. After surgical treatment and stabilization of the condition, the patient is referred for chemotherapy with a positive outcome. The second case is about a 21-year-old patient with undiagnosed pheochromocytoma, who had a tumor rupture with hemorrhage and the development of acute symptoms against the background of the start of antihypertensive therapy. After the retroperitoneoscopic adrenalectomy, the condition stabilized. The third case is about the experience of observing a 45-year-old patient with myelolipoma up to 6.4 cm, complicated by a previously suffered retroperitoneal hematoma, in whom surgical treatment was not performed due to the presence of end-stage chronic kidney disease and stable tumor condition.

KEYWORDS: adrenal tumor; complications; tumor rupture; retroperitoneal hematoma.

*Автор, ответственный за переписку / Corresponding author.

АКТУАЛЬНОСТЬ

Опухоли надпочечников встречаются довольно редко. Распространенность случайно выявленных новообразований надпочечников составляет в среднем 6%, а частота аденокортикального рака среди инциденталом — не более 1,9% [1]. Самой главной клинической задачей, стоящей при выявлении опухолей надпочечников, является исключение их гормональной активности и злокачественности. Малоизученными и не систематизированными остаются осложнения течения опухолей надпочечников в связи с редкостью их встречаемости и сложностью дифференциальной диагностики в момент ургентной ситуации.

Например, такое редкое осложнение, как разрыв опухоли надпочечника, сопровождающийся кровотечением и формированием забрюшинных гематом, является жизнеугрожающим состоянием. Несмотря на то, что разрыв опухоли надпочечника составляет от 0,03 до 3,0% среди судебно-медицинских случаев смерти от разрывов различных опухолей [2, 3], новообразования надпочечников являются третьей по частоте причиной возникновения кровоизлияний и гематом в паранефральном пространстве [4]. Наиболее часто в литературе описаны спонтанные разрывы кист, гемангиом надпочечников, феохромоцитом, метастазов в надпочечник рака легкого, молочной железы, меланомы [3].

При поиске информации на Pubmed выявлено около 300 статей, опубликованных за последние пять лет, на тему осложнений опухолей надпочечников, из них только 45 случаев — по поводу разрыва опухолей. На отечественной платформе eLibrary найдены 3 работы на тему разрыва опухолей надпочечников. Ввиду редкости данной патологии мы хотим поделиться 3 клиническими наблюдениями подобных осложнений.

ОПИСАНИЕ СЛУЧАЯ

Первое клиническое наблюдение

Пациентка П., 38 лет, госпитализирована в Клинику высоких медицинских технологий им. Пирогова Санкт-Петербургского государственного университета (КВМТ СПбГУ) в июне 2022 г. с жалобами на боли в левой половине живота и поясничной области, слабость, снижение массы тела. Из анамнеза заболевания известно, что в 2018 г. была впервые выявлена опухоль левого надпочечника, однако хирургическое лечение предложено не было, и пациентка оставалась под наблюдением эндокринолога. По данным компьютерной томографии от 2019 г., имелось новообразование левого надпочечника округлой формы с четкими ровными контурами, неоднородной структуры, размерами 8*7*7 см, накапливающее контраст. В марте 2022 г. экстренно госпитализирована по месту жительства с жалобами на сильные боли в левой поясничной области, выраженную общую слабость. По данным клинического анализа крови, при поступлении гемоглобин составил 57 г/л. По данным компьютерной томографии органов брюшной полости от 23.03.2022 г., описано образование левой почки с подозрением на злокачественный характер и образование малого таза. Пациентке выпол-

нена гемотрансфузия, после чего с диагнозом «Опухоль левой почки» выписана с рекомендацией обращения к онкоурологу. Спустя 2 недели повторно госпитализирована с жалобами на общую слабость, сильные боли в верхних отделах живота, тошноту, рвоту. В клиническом анализе крови гемоглобин составил 64 г/л. По данным компьютерной томографии органов брюшной полости от 27.04.2022 г.: забрюшинное образование увеличилось в размере до 24*12*12 см, имеет плотность 30-35 HU, ровные четкие контуры и перегородки, которые накапливают контраст, сдавливают и оттесняют левую почку. Повторно выполнена гемотрансфузия. Опухоль была расценена как неоперабельная, и с диагнозом «Опухоль забрюшинного пространства, анемия средней степени тяжести, кахексия» пациентка выписана на паллиативное лечение. После чего самостоятельно обратилась в нашу клинику.

При поступлении антропометрические показатели в норме, ИМТ — 20,45 кг/м², имели место незначительная тахикардия до ЧСС 114 уд/мин при нормальном АД 110/65 мм рт.ст., частота дыхательных движений — около 20 в мин.

По данным лабораторного исследования, обращали на себя внимание снижение уровня гемоглобина до 84 г/л, эритроцитов — до 2,91*10¹²/л, лейкоциты — 4,68*10⁹/л, моноцитоз — до 19% (0–5%) и снижение уровня лимфоцитов — до нижней границы нормы — 23,9% (20–40%).

В биохимическом анализе крови отмечалось снижение уровня натрия до 123,6 ммоль/л (130–157 ммоль/л) при нормальных уровнях калия и хлора, повышение ГГТ до 101,6 Е/л (7–32 Ед/л) при нормальном уровне общего билирубина 7,93 мкмоль/л и незначительное снижение уровня альбумина до 33,3 г/л (35–53%). АКТГ (Cobas e 411) — в пределах нормы — 3,35 пмоль/л (2,6–5,6 пмоль/л).

В коагулограмме изменений не выявлено.

При проведении МСКТ (рис. 1) в забрюшинном пространстве слева от уровня Th10 до уровня S1 выявлено многоузловое образование +25HU по плотности с толстой капсулой и плотными накапливающими контраст перегородками (индекс вымывания контраста не известен), с включениями жировой ткани размерами 28*15*11 см, смещающее селезенку и сдавливающее левую почку. Контрастирования чашечно-лоханочной системы левой почки не получено. При этом обращало на себя внимание наличие в структуре образования округлого компонента жировой плотности в верхней части диаметром около 10 см (что соответствовало выявленной ранее опухоли надпочечника) и кистозных полостей с жидким содержимым. В брюшной полости и в полости малого таза — небольшое количество жидкости.

Сопоставление данных анамнеза, клинической картины и данных МСКТ позволило предположить наличие у пациентки разрыва опухоли надпочечника с формированием забрюшинной гематомы.

После проведения предоперационной подготовки пациентка была прооперирована. При ревизии всю левую половину брюшной полости занимало неподвижное, плотное опухолевидное образование. Нисходящая ободочная кишка распластана по передней поверхности опухоли; левая почка находится в опухолевом конгломерате,

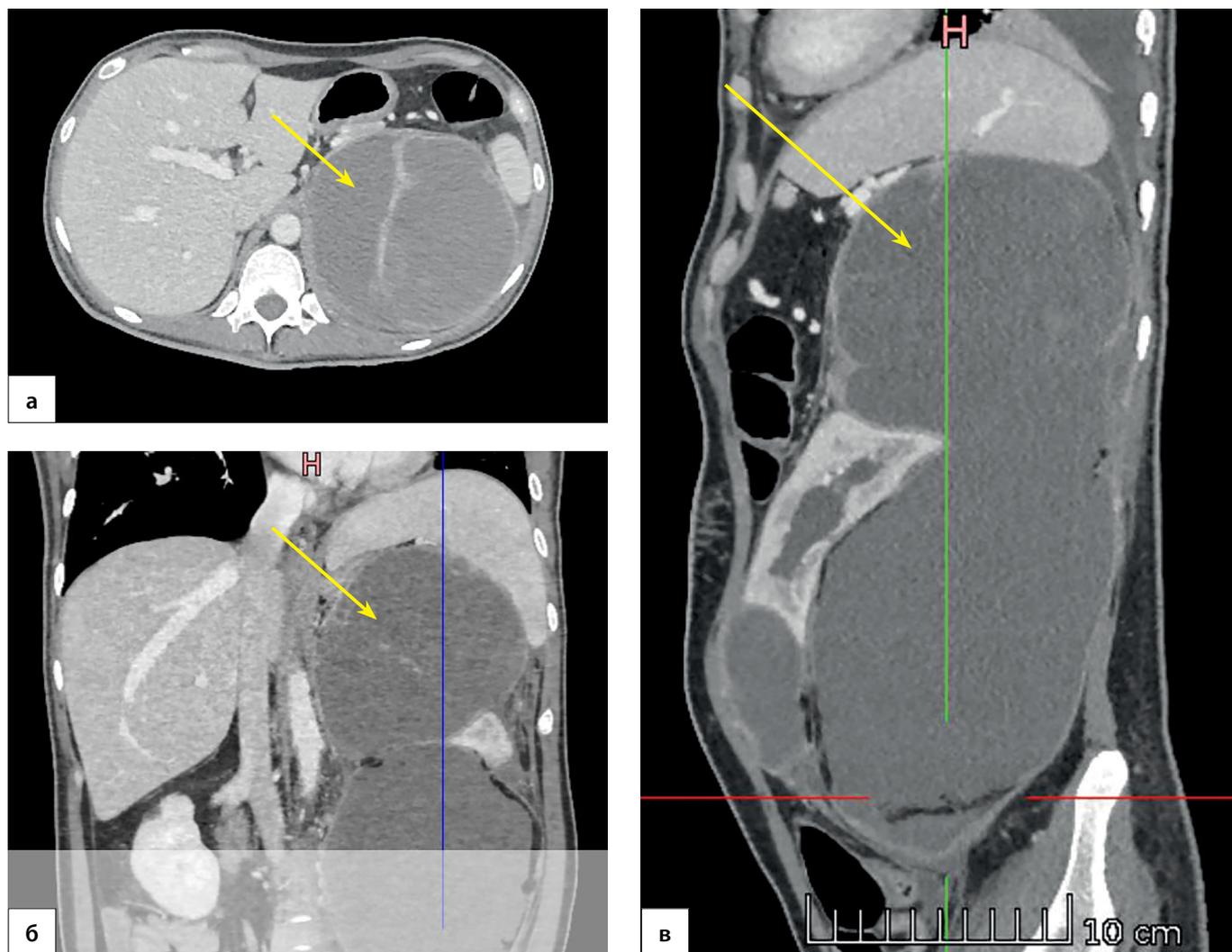


Рисунок 1. Пациентка П., 38 лет. МСКТ органов брюшной полости 31.05.2022 г. (венозная фаза), многоузловое образование слева (маркирована стрелкой), смещающее селезенку и сдавливающее левую почку: а) корональная проекция; б) аксиальная проекция; в) сагиттальная проекция.

почечные сосуды не прослеживаются (рис. 2); селезенка пальпируется отдельно, подвижная; поджелудочная железа распластана по верхней поверхности опухоли, без признаков инвазии; брюшной отдел аорты и левые подвздошные сосуды интимно спаяны с образованием; левый яичник представлен плотным опухолевидным образованием — 7 см в диаметре; червеобразный отросток плотный, булавовидно изменен — 6*3 см; устье плотное — 2 см в диаметре. Другие доступные осмотру органы без изменений. Вскрыта брюшина левого бокового канала. Брыжейка селезеночного изгиба, сигмовидной кишки отделена от опухоли. Перевязаны и пересечены нижняя брыжеечная вена, артерия. С выраженными техническими трудностями опухоль отделена от аорты, левых подвздошных сосудов. Последовательно выделены, перевязаны и пересечены левый мочеточник, левые почечные артерия и вена. Перевязаны и пересечены компенсаторно расширенные поясничные вены. Образование отделено от диафрагмы, поясничных мышц. При выделении задней поверхности опухоли вскрыт ее просвет, эвакуировано 2800 см³ старой лизированной крови. После чего препарат удален (рис. 3). Выполнена овариоэктомия слева. Нисходящий отдел толстой кишки одиночными узловыми швами фиксирован к брюшине левого бокового канала.

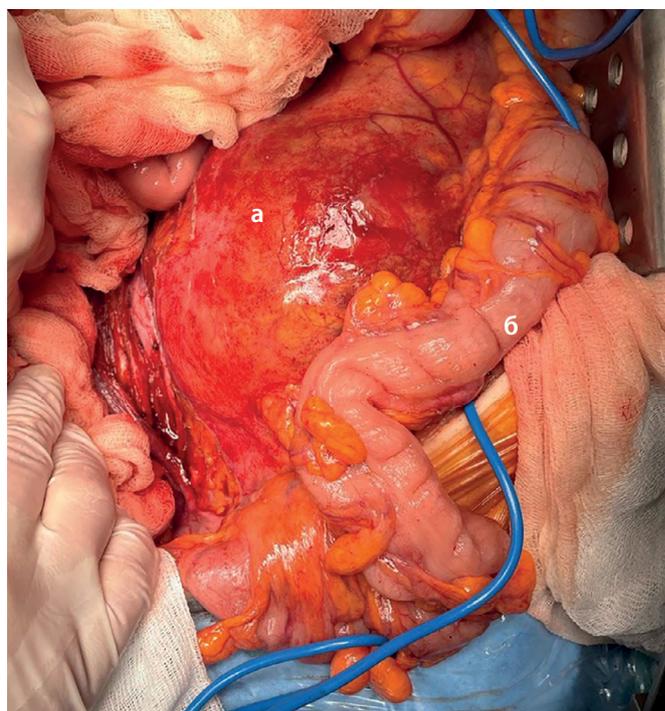


Рисунок 2. Пациентка П., 38 лет. Интраоперационная картина: а) опухолевый конгломерат; б) нисходящая ободочная кишка.

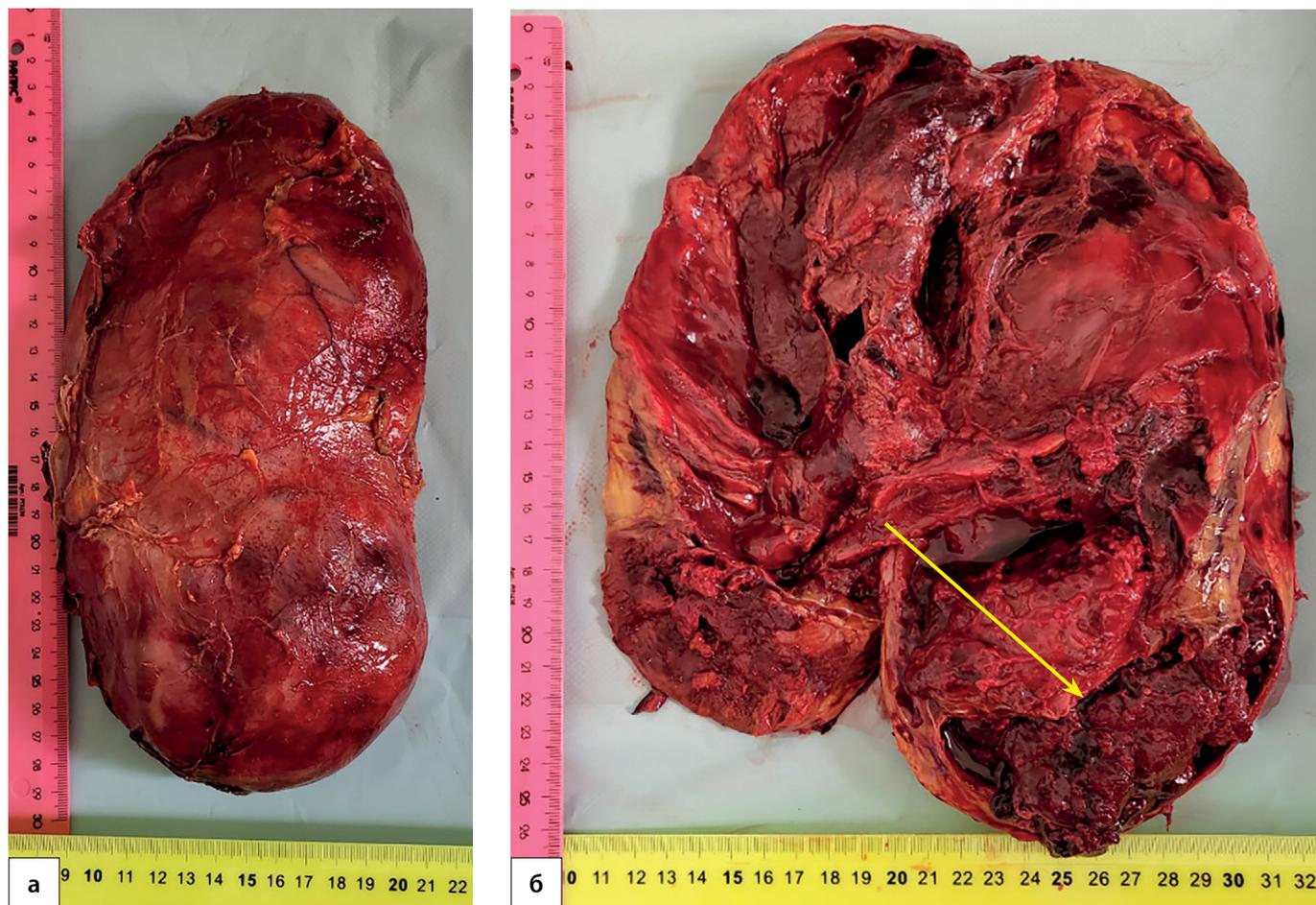


Рисунок 3. Пациентка П., 38 лет. Макропрепарат опухоли надпочечника: а) общий вид; б) на разрезе видны некротические изменения, разрыв капсулы, гематома (маркирована стрелкой).

Гистологически и иммуногистохимически верифицирована аденокортикальная карцинома левого надпочечника, high grade, 5 баллов по Weiss; с массивным субтотальным некрозом, формированием гигантского абсцесса по передней поверхности почки, геморрагическим компонентом, выраженным перифокальным десмопластическим и неспецифическим воспалительным компонентами, инвазией окружающей клетчатки. Индекс пролиферативной активности — 11%. 12 лимфатических узлов (0,2–2,0 см) с реактивными изменениями без опухолевого поражения.

Ранний послеоперационный период протекал гладко. В послеоперационном периоде отмечалось полное подавление уровня АКТГ до $<0,22$ пмоль/л (2,6–5,6 пмоль/л) и снижение кортизола до 36,93 нмоль/л (230–600 нмоль/л). Инициирована заместительная гормональная терапия.

Пациентка выписана из стационара на 9-е сутки после операции в удовлетворительном состоянии. Диагноз при выписке — основной: «Аденокортикальная карцинома левого надпочечника, pT2N0M0, стадия II. G3 Weiss 5, Melan A (+), Chromogranin (-), Ki67 -5%. Нефрареналэктомия слева (R0)». Осложнения: «Некроз опухоли. Кровотечение, формирование забрюшинной гематомы. Абсцедирование. Железодефицитная анемия легкой степени». Сопутствующий: «Тератома левого яичника» (рис. 4).

Направлена к онкологу по месту жительства для получения адъювантной полихимиотерапии. Через 1 год после операции активна, социализирована, жалоб не предъявляет, метастазов не описано.



Рисунок 4. Пациентка П., 38 лет. Макропрепарат тератомы левого яичника.



Рисунок 5. Пациентка Р., 21 год. МСКТ органов брюшной полости 18.06.15 г., корональная проекция, определяется жидкостное содержимое по левому флангу брюшной полости (маркирована стрелкой).

Второе клиническое наблюдение

Пациентка Р., 21 год, поступила 18.06.2015 г. с жалобами на слабость, боли в правой половине живота и поясничной области. Впервые в связи с головной болью и ощущением давления за грудиной и левой половине грудной клетки вызвала скорую медицинскую помощь (СМП) от 15.06.2015 г. При контроле — повышение АД 150/80 мм рт.ст., купированное приемом гипотензивных средств, но с развитием последующей слабости. На следующее утро стали отмечаться тошнота, головокружение, потеря сознания при попытке встать. Госпитализирована экстренно в дежурную городскую больницу от 16.06.2015 г., учитывая жалобы на боли в животе и левой поясничной области с субфебрилитетом, с подозрением на пиелонефрит. На МСКТ выявлено объемное образование левого надпочечника с признаками его разрыва и развитием забрюшинной гематомы. Жидкость по левому фланку брюшной полости. С диагнозом: «Новообразование левого надпочечника, разрыв опухоли, кровотечение, кровопотеря средней степени тяжести, забрюшинная гематома». Пациентка переведена в Клинику ВМТ им. Н.И. Пирогова для хирургического лечения.

При поступлении обращали на себя внимание следующие данные лабораторного исследования от 18.06.2015 г.: в клиническом анализе крови — снижение уровня гемоглобина до 100 г/л (120–140 г/л), эритроциты — $3,03 \times 10^{12}/л$, в биохимическом анализе крови — повышение АСТ до 66,7 Е/л (12–41 Ед/л), снижение уровня кальция — 0,88 ммоль/л (1,1–1,3 ммоль/л). В коагулограмме — незначительное повышение АЧТВ 37,3 (25,4–36,9), МНО — 1,18 (0,8–1,14), нормальное тромбиновое время — 15,7 сек. (10,3–16,6 сек.) и фибриноген — 3,6 г/л (1,8–4,0 г/л). Анализ газов крови показал дефицит оснований АВЕ -7,3 ммоль/л (-2,5 - +2,5 ммоль/л) и снижение рН до 7,12 (7,35–7,45) — ацидоз на фоне кровопотери, повышение глюкозы до 8,6 ммоль/л (до 6,1 ммоль/л) при нормальном уровне лактата — 0,7 ммоль/л

(0,5–2,2 ммоль/л), снижение стНв 7,6 г/дл (12–16 г/дл). Данных за гормональное обследование нет.

По данным МСКТ органов брюшной полости с внутривенным болюсным контрастированием, левый надпочечник увеличен за счет объемного образования размерами 6,6*5,6*6,7 см, плотностью от +10НУ до +22НУ с накоплением контрастного вещества по периферии образования в I фазу +90НУ, во II фазу +90 НУ, в отсроченную фазу +75 НУ. Гиповаскулярная центральная часть не накапливает контрастное вещество. По задней поверхности визуализируется дефект капсулы до 20 мм. Образование расположено на 10 мм выше почечной артерии и вены, прилежит к передней поверхности верхнего полюса левой почки. По левому флангу брюшной полости определяется наличие жидкостного содержимого (рис. 5).

Установлен диагноз: «Новообразование левого надпочечника, разрыв опухоли, кровотечение, кровопотеря средней степени тяжести, забрюшинная гематома». После кратковременной предоперационной подготовки в условиях отделения реанимации взята в операционную.

Выполнена ретроперитонеоскопическая адреналэктомия слева. В положении больной на животе паравертебрально слева ниже 12-, 11- ребра установлены три троакара. Инсуффляция CO_2 до 25 мм рт.ст. в забрюшинное пространство. Вскрыта фасция Герота, отмечается выраженная имбибиция кровью забрюшинной и околопочечной клетчатки, выполнена мобилизация верхнего, нижнего полюсов почки. Выделено новообразование левого надпочечника из имбибированной клетчатки размерами 7*8 см. Обнаружен дефект капсулы, из которого выбухает ткань опухоли грязно-багрового цвета, без признаков продолжающегося кровотечения. Выделена центральная вена левого надпочечника, лигирована, пересечена. Надпочечник с опухолью выделен из окружающих тканей и удален в контейнере.

Гистологическое заключение: «Феохромоцитома левого надпочечника с обширным кровоизлиянием (7 см в диаметре)».

Послеоперационный период — гладкий. Пациентка выписана на 8-е сутки. Диагноз при выписке: «Феохромоцитома левого надпочечника. Ретроперитонеоскопическая адrenaлэктомия». Осложнения: «Разрыв опухоли с кровотечением от 18.06.2015. Кровопотеря средней степени тяжести. Забрюшинная гематома».

При контрольном обследовании через 5 лет после операции жалоб, признаков рецидива заболевания не выявлено.

Третье клиническое наблюдение

Пациент П., 45 лет, обратился за консультацией в 2021 г. В анамнезе: образование правого надпочечника (аденома), в 2017 г. — разрыв опухоли с формированием забрюшинной гематомы. Пациенту было рекомендовано оперативное лечение, которое не было выполнено в связи с развитием острой почечной недостаточности. В марте 2020 г. в городской больнице №6 г. Владимира инициирована заместительная почечная терапия по поводу хронической болезни почек (ХБП) С5 в исходе гипертензивной нефропатии.

При поступлении отмечался избыток массы тела, ИМТ — 27,12 кг/м². По данным лабораторного исследова-

ния от 19.05.2021 г. обращали на себя внимание снижение гемоглобина до 77 г/л (120–140 г/л) и эритроцитов — до $2,54 \times 10^{12}/л$ (3,7–4,7), при этом цветовой показатель 0,9 — норма, незначительный лейкоцитоз — $10,16 \times 10^9/л$ (до $10 \times 10^9/л$). В биохимическом анализе крови: повышение фосфора до 1,96 ммоль/л (0,85–1,45 ммоль/л) и мочевины до 20,9 ммоль/л (3,2–7,3 ммоль/л), при низко-нормальном уровне кальция крови — 2,1 ммоль/л (2,2–2,6 ммоль/л) вторичное повышение ПТГ до 158,24 пг/мл (15–65 пг/мл) на фоне ХБП, также отмечалось повышение креатинина — 1202 мкмоль/л (53–106 мкмоль/л), уровни калия и натрия были в норме.

Данные за гормональную активность опухоли не предоставлены. По результатам предыдущих обследований: 16.12.20 г.: паратгормон 124,95 пг/мл (16,5–38,5 пг/мл) — повышен, 17.03.21 г. — 158,24 пг/мл.

При МСКТ в области правого надпочечника определяется крупное образование неоднородной (преимущественно жировой) плотности размером до 6,4*5,0*4,5 см с полиморфными тяжами (в сравнении с КТ 2019 г. и 2020 г. без отрицательной динамики). Образование прилежит к печени, верхнему полюсу правой почки, НПВ (рис. 6). В области нижнего полюса капсула не прослеживается. Окружающая клетчатка неоднородная, тяжистая (гематома с признаками организации?).

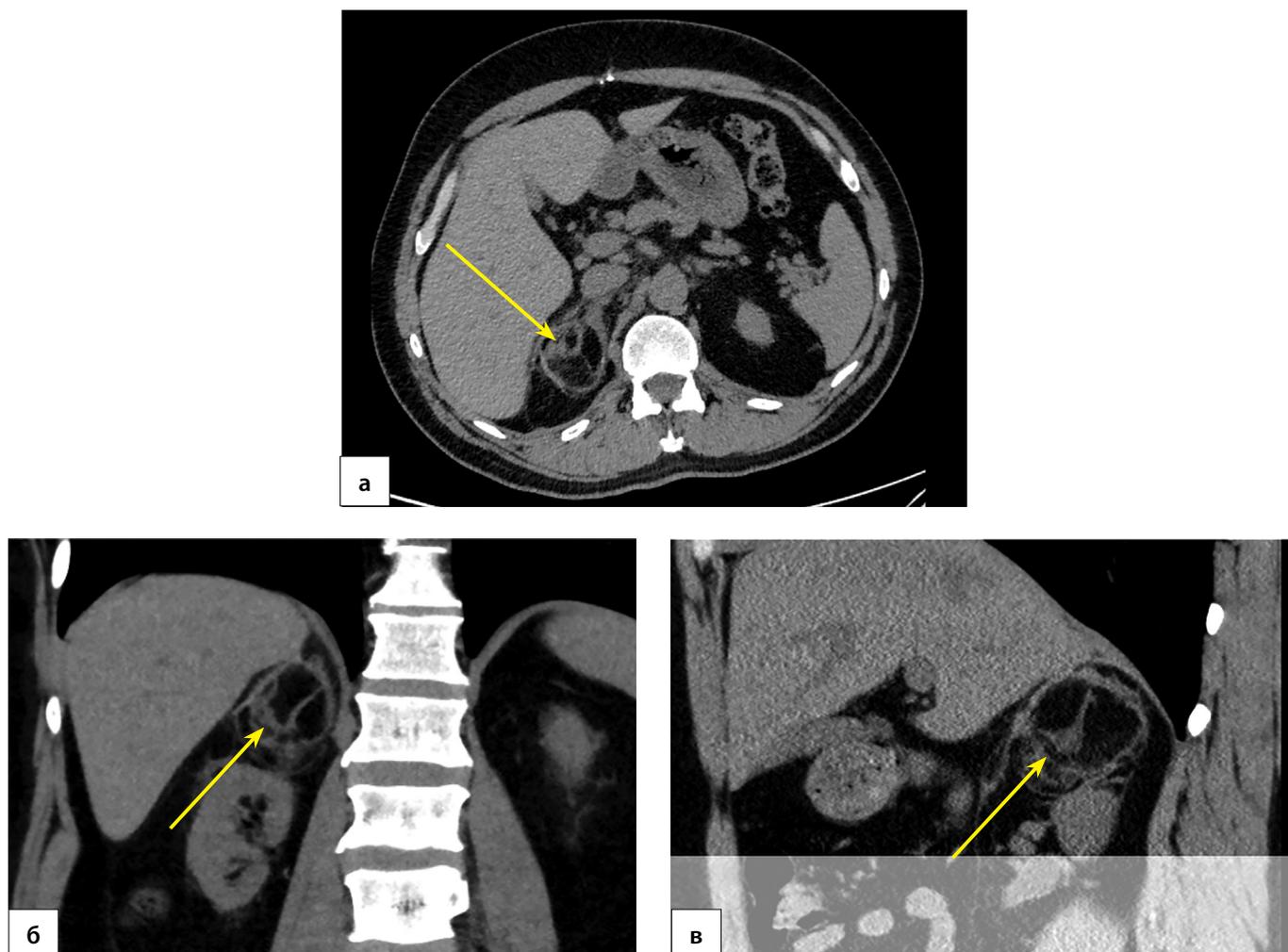


Рисунок 6. Пациент П., 45 лет. МСКТ брюшной полости. Организация гематомы (маркирована стрелкой): а) корональная проекция; б) аксиальная проекция; в) сагиттальная проекция.

Учитывая тяжелую сопутствующую патологию, отсутствие признаков рецидива кровотечения за 3 года наблюдения, принято решение о консервативном ведении пациента.

Диагноз при выписке: «Миелолипома правого надпочечника. Забрюшинная гематома». Сопутствующие заболевания: «Гипертоническая болезнь III ст. АГ 3 ст. Риск 4. N Iia ст. Хроническая болезнь почек 5 ст. Первичный нефроангиосклероз в исходе гипертензивной нефропатии». Осложнения: «ХПН, терминальная стадия, ХГД с 06.03.20 г. Вторичная (нефрогенная) анемия. Нарушение кальциево-фосфорного обмена».

При контрольном обследовании через год состояние пациента стабильное, со стороны образования надпочечника без отрицательной динамики.

ОБСУЖДЕНИЕ

Каждый морфологический вариант опухоли надпочечника имеет характерную, патогномичную клиническую картину, однако симптоматика разрыва опухоли у большинства из них схожая. Нами были представлены три клинических наблюдения спонтанного разрыва опухоли надпочечника с формированием забрюшинной гематомы. При обследовании у данных пациентов были подтверждены разрывы адренкортикальной карциномы, феохромоцитомы и миелолипомы.

Факторами риска разрыва новообразований надпочечников с последующим развитием забрюшинного кровотечения являются большие размеры опухолей (более 4–6 см), терапия антикоагулянтными препаратами, стресс, гипотензия и сепсис. Травматический разрыв более характерен для кист надпочечников и феохромоцитомы, хотя встречается также при миелолипомах и адренкортикальном раке, при этом чаще отмечается травматизация правого надпочечника [5, 6]. По механизму формирования разрыва выделяют травмы вследствие гиперрастяжения и сдавления. Lee K.A. и соавт. в 2019 г. опубликовали случай разрыва аденомы надпочечника, вызванного низкоэнергетической травмой [7].

В первом наблюдении описывается молодая женщина с адренкортикальной карциномой левого надпочечника, которую наблюдали по месту жительства в течение 4 лет. Двухэтапный разрыв опухоли с формированием крупной забрюшинной гематомы и связанное с этим резкое ухудшение состояния привели к ошибочной оценке пациентки как неоперабельной, что значительно отсрочило радикальное хирургическое лечение. Формирование крупной гематомы с абсцессом привело к сдавлению почки с потерей функции и необходимости ее удаления. В ходе лапаротомии из полости гематомы было эвакуировано около 2 литров крови, что обуславливало рецидивирование тяжелой анемии у данной пациентки. Схожая картина внезапного разрыва опухоли левого надпочечника с острыми выраженными болями в животе, иррадиирующими в поясничную область и левую половину грудной клетки, описаны в работе под руководством А.А. Лисицына [15]. У описанной авторами пациентки 22 лет также отмечались жалобы на слабость, головокружение и тошноту, при осмотре имело место повышение артериального давления до 130/80 мм рт.ст., пульс — 68 ударов в минуту, симптомы раздражения

брюшины отрицательные. На КТ брюшной полости и забрюшинного пространства была подтверждена опухоль левого надпочечника размерами 13*10 см, окруженная большой забрюшинной гематомой, залегающей от левого поддиафрагмального пространства до подвздошной области. Учитывая разрыв опухоли, осложненный массивным кровотечением в забрюшинное пространство, была проведена экстренная срединная лапаротомия с эвакуированием около 1,5 литра крови со сгустками, удалением опухоли размерами около 15*20 см. В области нижнего полюса опухоли обнаружен разрыв капсулы размерами около 4,0*3,0 см. Авторы работы не исключают, что данный процесс обусловлен быстрым ростом опухоли с последующим развитием распада опухолевой ткани и внутриопухолевого кровоизлияния с дальнейшим разрывом капсулы и продолжением кровотечения в забрюшинное пространство [17].

Описанное нами клиническое наблюдение №2 демонстрирует пример спонтанного разрыва феохромоцитомы, вероятнее всего, вызванного приемом гипотензивных препаратов и проявившегося резкой общей слабостью, головокружением, тошнотой и синкопе. В работе Elmoheen A. и соавт. (2020 г.) описан аналогичный случай спонтанного разрыва феохромоцитомы у 30-летнего пациента, поступившего с жалобами на сильную боль в области левого подреберья, боль в груди слева, головную боль на фоне повышения артериального давления до 162/102 мм рт.ст., тахикардии до 116 ударов в мин., сопровождавшихся потливостью, тревожностью [18]. Наша пациентка Р. имела схожие проявления до начала гипотензивной терапии, а именно: повышение уровня АД до 150/80 мм рт.ст., головные боли и боли в грудной клетке. У описанного пациента Elmoheen A. и соавт. (2020 г.) при КТ брюшной полости были выявлены признаки кровотечения из образования левого надпочечника размерами до 12,6 см с высокой нативной плотностью. На КТ-ангиографии отмечалась заднемедиальная активная экстрavasация контраста, наблюдаемая на артериальной фазе, которая исчезает главным образом в фазе задержки. Новообразование смещало левую почку вниз и латерально с выраженными окружающими жировыми тяжами и паранефральной жидкостью. Принято решение об экстренной ангиоэмболизации, однако в связи со сложностью катетеризации артерий надпочечника у пациента стали отмечаться признаки геморрагического шока, что потребовало экстренной лапаротомии. Операция завершилась успешно, послеоперационный период протекал гладко [18]. В нашем случае пациентке с 7 см опухолью с разрывом была сразу проведена ретроперитонеоскопическая адреналэктомия слева, при которой отмечалась выраженная имбиция кровью забрюшинной и околопочечной клетчатки с дальнейшим благоприятным исходом. При гистологическом исследовании подтверждена феохромоцитома левого надпочечника.

На долю феохромоцитомы приходится почти 50% спонтанных кровотечений опухолей надпочечников [8]. Однако в настоящее время нет точных данных о механизме спонтанного разрыва феохромоцитомы/параганглиомы, но такие факторы, как высокое внутрикапсулярное давление, вызванное быстрым ростом опухоли, ее некрозом или внутриопухолевым кровоизлиянием, могут приводить к разрыву капсулы [8]. Ряд авторов рассматривает

роль приема альфа-адреноблокаторов в развитии разрыва феохромоцитомы/параганглиомы [10]. Rzerka E. и соавт. (2022 г.) считают, что в случаях значительного кровотечения при феохромоцитоме эндоваскулярная эмболизация может спасти жизнь, так как в условиях гиповолемии следует избегать массивных хирургических вмешательств [11]. Например, в работе Ichikawa T. и соавт. (2021 г.) был описан случай уменьшения размера феохромоцитомы (после ее разрыва) у 60-летней женщины на фоне транскатетерной артериальной эмболизации (ТАЭ). Так, учитывая при поступлении выраженную артериальную гипертензию (193/115 мм рт.ст.), резкую боль в левом боку и визуализированное при КТ новообразование надпочечника, был предположен разрыв феохромоцитомы. Для остановки кровотечения в ближайшее время проведена ТАЭ и инициирована терапия доксазолином. В течение шести месяцев после выписки размер опухоли уменьшился примерно до 1,0 см, после чего планомерно выполнена лапароскопическая операция [11]. В работе Yoshida M. и соавт. (2021 г.) описан случай кровотечения из опухоли коры надпочечника у девочки 12 лет, при котором (впервые у детей) острое кровотечение было купировано путем проведения экстренной ТАЭ, а уже в более стабильном состоянии проведена адреналэктомия. Гистологическое исследование показало наличие адренкортикальной опухоли неизвестной степени дифференцировки из-за некроза. В течение 1,5 года пациентка чувствует себя хорошо, признаков гормонального нарушения или рецидива опухоли нет [13].

Paï H.V. (2018 г.) представил случай 64-летнего мужчины из Индии с жалобами на неопределенные боли в эпигастрии и сильные приступообразные головные боли, сердцебиение, потливость и обмороки, также отмечалось повышение уровня АД — максимально до 240/120 мм рт.ст. При обследовании выявлен повышенный уровень сахара крови до 9,4 ммоль/л, однако катехоламины плазмы, метанефрины и ванилилминдальная кислота суточной мочи были в пределах нормы. При КТ отмечались признаки сдавления нижней полой вены опухолью правого надпочечника. С целью предоперационной подготовки пациент стал принимать блокатор альфа-адренорецепторов (феноксифензамин), бета-блокаторы и инсулин актрапид, однако на фоне приема препаратов его состояние ухудшилось. У пациента отмечалась выраженная гипотензия, на фоне которой возникла асистолия. После проведения реанимационных мероприятий, внутривенного введения кристаллоидов и инфузии норадреналина состояние стабилизировалось, но через несколько часов появились сильные боли в животе, тахикардия. При УЗИ визуализирована гиперэхогенная опухоль и свободная жидкость в брюшной полости. Во время операции в области правого надпочечника — большая опухоль с признаками некроза, внутриопухолевого кровотечения и разрыва капсулы, эвакуировано около 2 л измененной крови со сгустками и частями опухоли. Выполнена правосторонняя адреналэктомия, мобилизована правая доля печени, опухоль отделена от нижней полой вены. После операции отмечалось длительное подтекание асцитической жидкости из дренажа из-за сохранения гипоальбуминемии. При гистологическом исследовании подтверждена феохромоцитома. В послеоперационном периоде уровень АД

и глюкозы крови нормализовались без терапии [10]. Необходимо отметить, что в описанном нами втором клиническом случае пациентка также отметила ухудшение состояния после приема гипотензивных средств. Рядом авторов выдвинуто предположение, что альфа-адреноблокаторы вызывают системную гипотензию, в результате чего и без того нарушенное кровообращение в опухоли становится неадекватным, вызывая некроз. Кроме того, расширение сосудов под действием тех же альфа-адреноблокаторов вызывает прогрессирующее интерстициальное кровоизлияние в опухоль, которое повышает давление внутри опухоли и провоцирует разрыв капсулы и гемоперитонеум [18]. Введение бета-блокаторов также оказало отрицательное воздействие на пациента с феохромоцитомой, описанного в работе Weber A.-L. [20]. Так, у 54-летнего мужчины, первоначально обратившегося с жалобами на острый приступ тошноты, рвоты и сильных болей в спине при поступлении отмечался лейкоцитоз, значительное повышение Д-димера и повышение уровня тропонина Т до 2,550 нг/мл (<0,014 нг/мл). На КТ органов грудной клетки данных за расслоение аорты и эмболия легочной артерии не выявлено, при этом случайно обнаружена забрюшинная гематома рядом с правой почкой. С подозрением на инфаркт миокарда планировался перевод в другое лечебное учреждение (ЛУ), но при переводе начала развиваться гемодинамически нестабильная суправентрикулярная тахикардия. После введения метопролола у пациента произошла остановка сердца. По прибытии в ЛУ была немедленно выполнена веноартериальная экстракорпоральная мембранная оксигенация (ВА-ЭКМО) для обеспечения экстракорпоральной сердечно-легочной реанимации. На КТ органов брюшной полости и забрюшинного пространства выявлена опухоль правого надпочечника размером до 5 см с частичным разрывом и забрюшинной гематомой рядом с почкой. Последующая коронароангиография также исключила ишемическую болезнь сердца. Из-за серьезного ограничения бивентрикулярной функции сердца и потенциальной перегрузки левого желудочка (ЛЖ) ретроградным артериальным потоком ЭКМО была имплантирована микроаксиальная помпа Impella CP для активной разгрузки ЛЖ. Первичный анализ газов артериальной крови показал тяжелый комбинированный метаболический и респираторный ацидоз с рН 6,92 и лактатом >15 ммоль/л. Важно отметить, что сопутствующими патологическими состояниями были нейрофиброматоз 1-го типа и зоб II степени, из терапии — L-тироксин 100 мкг/сут. Учитывая наличие нейрофиброматоза типа 1, образования правого надпочечника с разрывом, кардиогенный шок и гипертонические значения АД, заподозрена катехоламин-индуцированная кардиомиопатия, связанная с феохромоцитомой. Лабораторно выявлено повышение уровней адреналина и норадреналина, метанефрина и норметанефрина плазмы. Гистологическое исследование послеоперационного материала подтвердило предполагаемый диагноз разорвавшейся некротической феохромоцитомы [19].

Большие миелолипомы (>10 см) также могут вызывать симптомы компрессии или осложнения и поэтому считаются кандидатами на хирургическое вмешательство. Схожая тактика принята при простых кистах надпочечников [15]. Примером данной точки зрения служит работа

Ioannidis O. (2011 г.), где представлен клинический случай гигантских двусторонних миелолипом надпочечников у 34-летней женщины с врожденной гиперплазией надпочечников с 21-гидроксилазной недостаточностью. При обращении по поводу болей в животе и рвоты у женщины выявлены признаки выраженной вирилизации и пальпируемые образования в брюшной полости с обеих сторон. На КТ органов брюшной полости отмечались двусторонние объемные образования надпочечников диаметром 20 см слева и 15 см справа похожие по плотности на жировую ткань. Дифференциальный диагноз проводился между миелолипомой и липосаркомой. Пациентка без особой подготовки была оперирована и после гистологического исследования установлен диагноз миелолипомы надпочечников [21]. Несмотря на большой размер образований разрыв не зафиксирован. В данном случае пациентку беспокоили симптомы компрессии.

Тактика лечения бессимптомных миелолипом размером от 4 см до 10 см является спорной и плохо определенной [15]. В 2021 г. Kim D.S. и соавт. описали редкий случай разрыва миелолипомы, проявившейся сильной болью в правом подреберье. Во время обследования при компьютерной томографии выявлено образование 9 см в диаметре с плотностью схожей с жировой тканью с ретроперитонеальным кровоизлиянием. В данном клиническом случае, несмотря на большой размер опухоли и наличие гематомы, опухоль была удалена лапароскопическим доступом с гладким послеоперационным периодом [16].

Описанный нами третий клинический случай касается миелолипомы размером до 64 мм. Согласно исследованиям, новообразование подобных размеров обладает низким риском разрыва, компрессии или спонтанного кровоизлияния, в связи с чем его можно наблюдать. Тем не менее у нашего пациента с меньшими размерами опухоли зафиксирован ее разрыв с формированием забрюшинной гематомы. Вероятно, данный факт был обусловлен тяжелой сопутствующей патологией. Несмотря на перенесенный разрыв, пациент стабилен на консервативной терапии, что подтверждает возможность наблюдения данных пациентов.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Разрыв опухоли надпочечника является редким, но грозным острым мало прогнозируемым осложнением. В экстренной ситуации дифференциальная диагностика является сложной задачей, решение которой может спасти пациента в первые часы разрыва опухоли, особенно

если это касается течения феохромоцитомы. В настоящее время не существует клинических рекомендаций ведения пациентов с осложненным течением опухолей надпочечников, описывающих наиболее эффективную и безопасную тактику в urgentной ситуации и после ее разрешения. При закрытых повреждениях надпочечников допустимо консервативное лечение в случае гемодинамической стабильности даже при наличии забрюшинной гематомы. В случае разрыва опухоли надпочечника экстренная адреналэктомия, в том числе с применением эндоскопических методик, улучшает прогноз пациентов независимо от типа опухоли. Выбор доступа в этих ситуациях должен осуществляться в зависимости от состояния пациента, оснащенности клиники и опыта оперирующей бригады. Несомненным, на наш взгляд, также является выполнение плановой адреналэктомии при крупных новообразованиях надпочечников, независимо от наличия или отсутствия гормональной активности и признаков злокачественности образования, как необходимости предупреждения развития подобных осложнений.

ДОПОЛНИТЕЛЬНАЯ ИНФОРМАЦИЯ

Источники финансирования. Данное исследование выполнено при поддержке ФГБОУ ВО «Санкт-Петербургский государственный университет Клиника высоких медицинских технологий им. Н.И. Пирогова», Санкт-Петербург, Россия.

Конфликт интересов. Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с содержанием настоящей статьи.

Участие авторов. Непомнящая С.Л., Семилетова Ю.В. — концепция и дизайн исследования, сбор информации, написание текста; Краснов Л.М. — концепция и дизайн исследования, внесение правки в рукопись; Федоров Е.А., Данилин В.Н., Дмитриченко В.В., Кулешов О.В., Алексеев М.А., Придвижина Т.С., Логинова О.И. — получение, анализ и интерпретация данных, внесение правки в рукопись; Бахтиярова А.Р., Реброва Д.В., Павликова И.А. — сбор информации, написание текста, внесение правки в рукопись.

Все авторы одобрили финальную версию статьи перед публикацией, выразили согласие нести ответственность за все аспекты работы, подразумевающую надлежащее изучение и решение вопросов, связанных с точностью или добросовестностью любой части работы.

Согласие пациента. Пациенты добровольно подписали информированное согласие на публикацию персональной медицинской информации в обезличенной форме (в журнале «Эндокринная хирургия»). Сканированные изображения подписанного информированного согласия направлены в редакцию в виде отдельного файла вместе с рукописью.

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ | REFERENCES

1. Бельцевич Д.Г., Мельниченко Г.А., Кузнецов Н.С. и соавт. Клинические рекомендации Российской ассоциации эндокринологов по дифференциальной диагностике инциденталом надпочечников // *Эндокринная хирургия*. — 2016. — Т.10. — №4. — С. 31–42
2. Hammond NA, Lostumbo A, Adam SZ, et al. Imaging adrenal and renal hemorrhage. *Abdom Imaging*. 2015;40(7):2747–2760
3. Gomez Hernandez MT, Franch-Arcas G, Gonzales Sanchez C, et al. Retroperitoneal haemorrhage after traumatic rupture of a pheochromocytoma. *Cir Esp*. 2013;91(3):197–199
4. Katabathina VS, Katre R, Prasad SR, et al. Wunderlich syndrome: cross-sectional imaging review. *J.Comput Assist Tomogr*. 2011;35(4): 425–433
5. Пиголкин Ю.И., Должанский О.В., Пальцева Е.М. и др. Судебно-медицинская оценка травматических и спонтанных разрывов органов при поражении опухолью // *Судебно-медицинская экспертиза*. — 2017. — №2. — С. 49–56. doi: <https://doi.org/10.17116/sudmed201760249-56>
6. Белобородов В.А. «Двухфазный» разрыв опухоли надпочечника // *Сибирский онкологический журнал*. — 2005. — Т5. — №5. — С. 79–81
7. Lee KA, Jin HY. Non-surgically treated case of nonfunctioning ruptured adrenal adenoma in a patient on hemodialysis. *Endocrine*. 2019;65(1):213–216. doi: <https://doi.org/10.1007/s12020-019-01948-3>

8. Реброва Д.В., Ворохобина Н.В., Имянитов Е.Н. и др. Клиническо-лабораторные особенности наследственных феохромоцитом и параганглиом // *Проблемы эндокринологии*. — 2022. — Т. 68. — №1. — С. 8-17. doi: <https://doi.org/10.14341/probl12834>
9. Kumar A, Pappachan JM, Fernandez CJ. Catecholamine-induced cardiomyopathy: an endocrinologist's perspective. *Rev Cardiovasc Med*. 2021;22(4):1215-1228. doi: <https://doi.org/10.31083/j.rcm2204130>
10. Pai HV. Rupture of pheochromocytoma caused by phenoxybenzamine — A case report. *Urol Case Rep*. 2018;20:70–71. doi: <https://doi.org/10.1016/j.eucr.2018.07.005>
11. Rzepka E, Kokoszka J, Grochowska A, et al. Adrenal bleeding due to pheochromocytoma – A call for algorithm. *Front Endocrinol (Lausanne)*. 2022;13:908967. doi: <https://doi.org/10.3389/fendo.2022.908967>
12. Ichikawa T, Oyabu C, Minamida M, Ichijo Y, et al. Changes in the Size of a Ruptured Pheochromocytoma after Transcatheter Arterial Embolization. *Case Rep Med*. 2021;4:5568978. doi: <https://doi.org/10.1155/2021/5568978>
13. Yoshida M, Takahashi H, Yamaki Y, Chiba F, Mori K. Successful transcatheter arterial embolization for ruptured adrenocortical tumor in a pediatric patient. *Radiol Case Rep*. 2021;16(4): 979–982. doi: <https://doi.org/10.1016/j.radcr.2021.02.008>
14. Qin H, Yang S, Cai S, Ren Q, Han W, Yang W, Cheng H, Ma X, Wang H. Clinical characteristics and risk factors of 47 cases with ruptured neuroblastoma in children. Qin et al. *BMC Cancer*. 2020;20:243. doi: <https://doi.org/10.1186/s12885-020-06720-9>
15. Mahmodlou R, Valizadeh N. Spontaneous Rupture and Hemorrhage of Adrenal Pseudocyst Presenting With Acute Abdomen and Shock. *Iran J Med Sci*. 2011;36(4): 311–314
16. Kim DS, Lee JW, Lee SH. Spontaneous rupture of adrenal myelolipoma as a cause of acute flank pain: A case report. *World J Clin Cases*. 2021;9(22): 6552–6556. doi: <https://doi.org/10.12998/wjcc.v9.i22.6552>
17. Лисицын А.А., Земляной В.П., Великанова Л.И., Шафигуллина З.Р. Гормонально-активный аденокортикальный рак левого надпочечника, осложненный спонтанным разрывом опухоли // *Вестник ДГМА*. — 2020. — Т. 35. — №2. — С.30-33
18. Elmoheen A, Elmesery M, Yousry A, Bashir K. Ruptured functioning adrenal tumour, atypical presentation with renal colic and hypertension. *BMJ Case Rep*. 2020;13:e236050. doi: <https://doi.org/10.1136/bcr-2020-236050>
19. Van Way CW, Franci RP, Cleveland HC, et al. Hemorrhagic necrosis of pheochromocytoma associated with phentolamine administration. *Ann Surg*. 1976;184:26–30
20. Weber A-L, Pfefer TJ, Leitolf H, Ringe B, et al. Cardiogenic shock due to a spontaneously ruptured pheochromocytoma: a rare but lifethreatening event—a case report. *Clinical Research in Cardiology*. 2022;111:1401–1403 doi: <https://doi.org/10.1007/s00392-022-02115-x>
21. Ioannidis O, Papaemmanouil S, Chatzopoulos S, et al. Giant bilateral symptomatic adrenal myelolipomas associated with congenital adrenal hyperplasia. *Pathol Oncol Res*. 2011;17(3):775-8. doi: <https://doi.org/10.1007/s12253-010-9330-2>

ИНФОРМАЦИЯ ОБ АВТОРАХ [AUTHORS INFO]

***Непомнящая Светлана Леонидовна**, к.м.н., доцент [Svetlana L. Nepomnyashchaya, PhD];
ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4897-6144>; Researcher ID: E-5875-2017; eLibrary SPIN: 9746-9724;
e-mail: nsmapo@inbox.ru

Краснов Леонид Михайлович, д.м.н. [Leonid M. Krasnov, MD, PhD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4449-0251>;
SCOPUS ID: 7003572477; eLibrary SPIN: 355848; e-mail: krasnov.surg@mail.ru

Федоров Елисей Александрович, к.м.н. [Elisey A. Fedorov, MD, PhD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1294-811X>;
SCOPUS ID: 57190018578; eLibrary SPIN: 5673-2633; e-mail: elick@yandex.ru

Реброва Дина Владимировна, к.м.н. [Dina V. Rebrova, MD, PhD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7840-4174>;
Researcher ID: AHD-5099-2022; SCOPUS ID: 57195152806; eLibrary SPIN: 6284-9008; e-mail: endocrinology@list.ru

Семилетова Юлия Вадимовна, к.м.н., доцент [Yulia V. Semiletova, MD, PhD];
ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5706-250X>; e-mail: ssemiletov@mail.ru

Павликова Ирина Андреевна [Irina A. Pavlikova, MD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1753-6296>;
e-mail: pavlikova_irina_97@mail.ru

Бахтиярова Алюза Рамильевна [Alyuza R. Bakhtiyarova, MD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-5531-423X>;
eLibrary SPIN: 1305-4902; e-mail: alyuza_endo@mail.ru

Данилин Валерий Николаевич [Valeriy N. Danilin, MD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2076-4983>;
e-mail: d-r.dvn@yandex.ru

Дмитриченко Вячеслав Владимирович, к.м.н., заслуженный врач ПФ [Vyacheslav V. Dmitrichenko, MD];
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1004-3712>; e-mail: docdmitchenko@mail.ru

Кулешов Олег Владимирович, к.м.н. [Oleg V. Kuleshov, MD, PhD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5177-2527>;
e-mail: dkov2001@mail.ru

Алексеев Михаил Александрович [Michail A. Alekseev, MD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5643-5204>;
e-mail: miha_decor@mail.ru

Придвижкина Татьяна Сергеевна, к.м.н. [Tatyana S. Pridvijkina, MD, PhD];
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7056-5977>; e-mail: pts1971@mail.ru

Логина Ольга Ивановна [Olga I. Loginova, MD]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-2484-4895>;
e-mail: olga7.smirnova@gmail.com

*Автор, ответственный за переписку / Corresponding author.

ИНФОРМАЦИЯ:

Рукопись получена: 17.10.2023. Рукопись одобрена: 12.11.2023. Received: 17.10.2023. Accepted: 12.11.2023.

ЦИТИРОВАТЬ:

Непомнящая С.Л., Федоров Е.А., Краснов Л.М., Реброва Д.В., Семилетова Ю.В., Павликова И.А., Бахтиярова А.Р., Данилин В.Н., Дмитриченко В.В., Кулешов О.В., Алексеев М.А., Придвижкина Т.С., Логинова О.И. Клинические случаи диагностики и лечения опухолей надпочечников, осложненных разрывом и формированием забрюшинной гематомы // *Эндокринная хирургия*. — 2024. — Т. 18. — № 1. — С. 29-39. doi: <https://doi.org/10.14341/serg12823>

TO CITE THIS ARTICLE:

Nepomnyashchaya SL, Fedorov EA, Krasnov LM, Rebrova DV, Semiletova YV, Pavlikova IA, Bakhtiyarova AR, Danilin VN, Dmitrichenko VV, Kuleshov OV, Alekseev MA, Pridvijkina TS, Loginova OI. Case reports of diagnosis and treatment of adrenal tumors complicated by rupture and formation of retroperitoneal hematoma. *Endocrine Surgery*. 2024;18(1):29-39. doi: <https://doi.org/10.14341/serg12823>