

УДК 616-007-053.1

DOI: 10.24884/1682-6655-2024-23-1-76-80

М. К. ШАПИНА¹, М. И. ГУРОВА¹, Н. А. ИЛЬИНА^{2, 3}

Рецидив врожденной диафрагмальной грыжи у ребенка с врожденным пороком сердца: клиническое наблюдение

¹ Санкт-Петербургское государственное бюджетное учреждение здравоохранения «Детская городская поликлиника № 68», Санкт-Петербург, Россия

195426, Россия, Санкт-Петербург, пр. Наставников, д. 20, корп. 1

² Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Северо-Западный государственный медицинский университет имени И. И. Мечникова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, Санкт-Петербург, Россия

195067, Россия, Санкт-Петербург, Пискаревский пр., д. 47

³ Санкт-Петербургское государственное бюджетное учреждение здравоохранения «Детский городской многопрофильный клинический специализированный центр высоких медицинских технологий», Санкт-Петербург, Россия

198205, Россия, Санкт-Петербург, Авангардная ул., д. 14

E-mail: majyashapina@yandex.ru

Статья поступила в редакцию 29.11.23 г.; принята к печати 27.12.23 г.

Резюме

Врожденная диафрагмальная грыжа (ВДГ) является тяжелым врожденным пороком развития, возникающим в результате замедления процесса закрытия плевроперитонеального канала или несостоятельности диафрагмы, что приводит к смещению органов брюшной полости в грудную полость. Своевременная диагностика рецидива диафрагмальной грыжи в отдаленный период вызывает большие трудности. В статье представлено клиническое наблюдение пациентки 1 г. 8 мес., оперированной по поводу ложной врожденной диафрагмальной грыжи и врожденного порока сердца в период новорожденности. Выполнение рентгенографии грудной клетки на амбулаторном этапе позволило диагностировать рецидив ВДГ и определить срочность госпитализации в стационар, где диагноз был подтвержден методом компьютерно-томографической ангиографии и проведено хирургическое лечение.

Ключевые слова: врожденная диафрагмальная грыжа, дети, рентгенография грудной клетки, врожденные аномалии диафрагмы, лучевые методы диагностики

Для цитирования: Шапина М. К., Гурова М. И., Ильина Н. А. Рецидив врожденной диафрагмальной грыжи у ребенка с врожденным пороком сердца: клиническое наблюдение. Регионарное кровообращение и микроциркуляция. 2024;23(1):76–80. Doi: 10.24884/1682-6655-2024-23-1-76-80.

UDC 616-007-053.1

DOI: 10.24884/1682-6655-2024-23-1-76-80

М. К. SHAPINA¹, М. I. GUROVA¹, N. A. ILYINA^{2, 3}

Multimodal radiology diagnostics for recurrent congenital diaphragmatic hernia in a child with congenital heart disease: clinical case

¹ Children's City Polyclinic № 68, Saint Petersburg, Russia

20/1, Nastanovnikov str., Saint Petersburg, Russia, 195426

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

47, Piskarevskii str., Saint Petersburg, Russia, 195067

³ Children's City Multidisciplinary Clinical Specialized Center of High Medical Technologies, Saint Petersburg, Russia

14, Avangardnaya str., Saint Petersburg, Russia, 198205

E-mail: majyashapina@yandex.ru

Received 29.11.23; accepted 27.12.23

Summary

Congenital diaphragmatic hernia (CDH) is a severe congenital malformation that occurs as a result of delayed closure of the pleuroperitoneal canal or the diaphragm failure, which leads to the displacement of abdominal organs into the thoracic cavity. Timely diagnosis of recurrent diaphragmatic hernia in the long-term period causes great difficulties. The article presents a clinical observation of a 1-year-and-8-months old female patient operated on for false congenital diaphragmatic hernia and congenital heart defect during the newborn period. Chest X-ray at the outpatient stage allowed diagnosing a relapse of CDH and determining the urgency of hospitalization. In the hospital, the diagnosis was confirmed by computed tomography, surgical treatment was performed.

Keywords: congenital diaphragmatic hernia, children, chest X-ray, congenital anomalies of the diaphragm, computed tomography, radiation diagnostic methods

For citation: Shapina M. K., Gurova M. I., Ilyina N. A. Multimodal radiology diagnostics for recurrent congenital diaphragmatic hernia in a child with congenital heart disease: clinical case. Regional hemodynamics and microcirculation. 2024;23(1):76–80. Doi: 10.24884/1682-6655-2024-23-1-76-80.

Введение

Врожденная диафрагмальная грыжа (ВДГ) является тяжелым врожденным пороком развития, возникающим в результате замедления процесса закрытия плевроперитонеального канала или несостоятельности диафрагмы, что приводит к смещению органов брюшной полости в грудную полость [1, 2], характеризующимся высоким уровнем летальности (от 25 до 60 %) на госпитальном этапе [3, 4]. Выявляется в 1 случае на каждые 2000–4000 живорожденных и составляет 8 % от всех случаев врожденных аномалий [4–6]. ВДГ преимущественно является патологией периода новорожденности, но примерно в 10 % случаев она выявляется и в более поздние сроки. Своевременно и правильно проведенное рентгенологическое исследование, такое как рентгенография органов грудной клетки и брюшной полости и, в более тяжелых случаях, многосрезовая компьютерная томография (МСКТ) грудной и брюшной полости позволяет выявить различные виды грыж, изучить функциональное состояние диафрагмы, сердца, легких, пищевода, желудка [7–9]. В 20 % случаев ВДГ сочетается с врожденными пороками сердца (ВПС) [3, 8].

Отечественные и зарубежные публикации описывают различные послеоперационные осложнения в хирургии ВДГ [6, 8], среди которых отмечают рецидивы, встречающиеся у 7 % прооперированных больных. При этом отмечается, что приблизительно у половины этих пациентов рецидивы возникают у детей в первый год после операции и в некоторых случаях связаны с ростом ребенка [5, 7, 9, 10].

Своевременная диагностика рецидива диафрагмальной грыжи в отдаленный период вызывает большие трудности [9, 11].

Рецидивы ВДГ чаще всего встречаются при левосторонней локализации патологического процесса и обусловлены недостаточно прочным ушиванием диафрагмального дефекта [3, 10, 12].

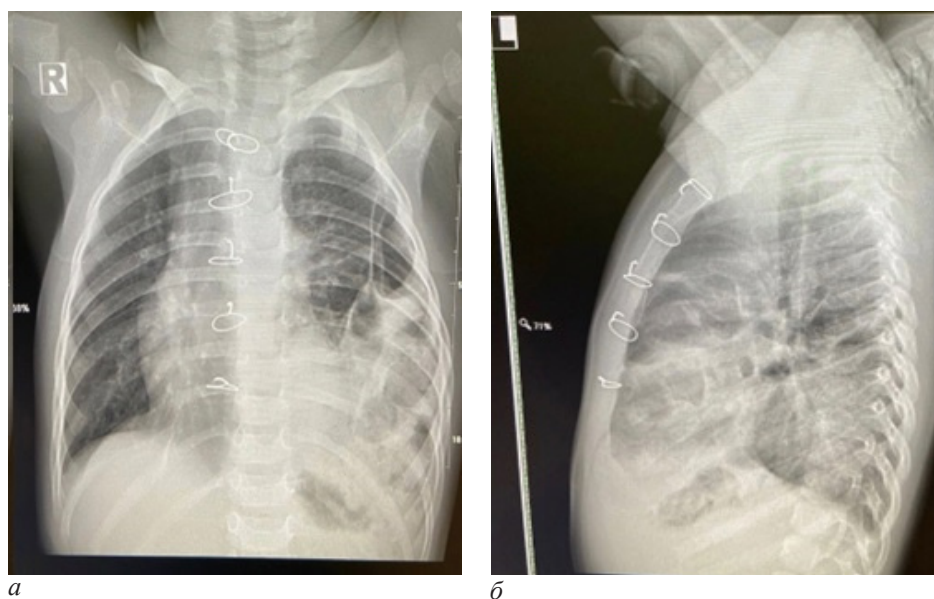
Цель клинического наблюдения – продемонстрировать возможности лучевых методов, особенно рутинной рентгенографии грудной клетки, в своевременной диагностике и определении тактики при рецидиве ВДГ у детей.

Клиническое наблюдение

Девочка, 1 год 8 месяцев. На плановом приеме у хирурга проходила диспансерный осмотр (в анамнезе торакоскопическая пластика левого купола диафрагмы по поводу левосторонней ВДГ в возрасте 1-х суток жизни). Состоит на диспансерном учете у кардиолога по поводу ВПС: субаортальный дефект межжелудочковой перегородки (ДМЖП), вторичный дефект межпредсердной перегородки (ДМПП), состояние после суживания легочной артерии (ЛА) в возрасте 9 суток жизни, после закрытия ДМЖП, пластики ЛА в возрасте 1 год 16 суток жизни.

Мать предъявляет жалобы на появившуюся у дочери одышку при физической нагрузке, умеренно выраженную слабость. Живот мягкий, безболезненный, послеоперационный рубец без признаков воспаления, сухой.

Хирургом ребенок был направлен на плановую рентгенографию органов грудной клетки в стандартной прямой проекции, которую выполняли на рентгенографическом цифровом аппарате «ОКО – РЦ» (НПК «Электрон», Россия). Была проведена дополнительная левая боковая проекция. В результате данного исследования выявлено: левое легочное поле представлено преимущественно верхней долей,



а

б

Рис. 1. Данные рентгенограммы в прямой и боковой проекциях выявили: уменьшение объема левого легочного поля за счет визуализируемых в нижних отделах петель кишечника с содержимым, отмечаются единичные спайки. Средостение смещено вправо. В проекции грудины определяются металлические скобки (состояние после оперативного лечения ВПС)

Fig. 1. X-ray data in direct and lateral projections revealed a decrease in the volume of the left pulmonary field due to the intestinal loops with contents visualized in the lower sections; single adhesions are noted. The mediastinum is shifted to the right. In the projection of the sternum, metal brackets are determined (the condition after surgical treatment of CHD)

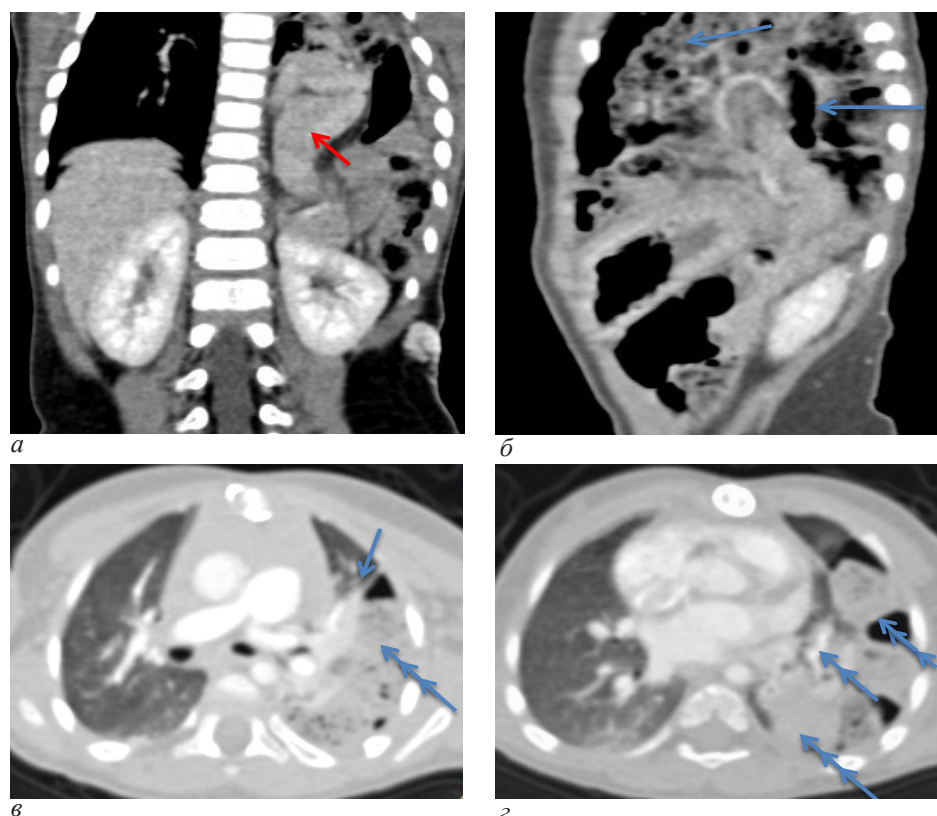


Рис. 2. МСКТ-ангиография, реформации в коронарной (а) и сагиттальной (б) плоскости, средостенное окно. Слева в полости плевры визуализируется селезенка (стрелка) и петли кишки (двойная стрелка). Селезенка ротирована (стрелка), ворота открыты латерально, прослеживается ход селезеночной артерии и вены. Пролабирования других органов брюшной полости в грудную полость нет. КТ-срезы в аксиальной плоскости, легочное окно. В полости плевры слева визуализируются селезенка и петли кишки (тройные стрелки). Определяется компрессия нижней доли левого легкого (двойная стрелка), вентиляционные нарушения верхней доли левого легкого (стрелка). Средостение смещено вправо. Металлические скобки на грудице (в, з)

Fig. 2. MDCT angiography, reformatting in the coronal (a) and sagittal (б) plane, mediastinal window. On the left, in the pleural cavity, the spleen (arrow) and intestinal loops (double arrow) are visualized. The spleen is rotated (arrow), the hilum is open laterally, the course of the splenic artery and vein can be traced. There is no prolapse of other abdominal organs into the pleural cavity. Axial CT slices, pulmonary window. In the pleural cavity on the left, the spleen and intestinal loops are visualized (triple arrows). Compression of the lower lobe of the left lung (double arrow) and ventilation disorders of the upper lobe of the left lung (arrow) are determined. The mediastinum is shifted to the right. Metal braces are on the sternum (в, з)

пневматизация нижних отделов не прослеживается, в базальных отделах левого легкого визуализируются петли кишки с содержимым. Диагностирован рецидив левосторонней ВДГ (рис. 1).

По результатам рентгенологического исследования ребенок был экстренно госпитализирован. В стационаре на аппарате Somatom Definition AS 64 (Siemens, США) проведена многосрезовая компьютерно-томографическая ангиография (МСКТ-АГ) органов брюшной полости (предыдущая контрольная МСКТ-АГ сердца и грудной полости была выполнена в возрасте ребенка 1 год 9 дней – через 1 год после кардиохирургического оперативного лечения: суживания ЛА). При данной МСКТ-АГ органов брюшной полости была выявлена эквентрация селезенки и петель кишечника в плевральную полость до уровня заднего отрезка IV ребра слева (рис. 2, а, б). Также в зоне сканирования определялись признаки компрессии нижней доли (рис. 2, в), дислокация сегментов, а также вентиляционные изменения верхней доли левого легкого (рис. 2, г).

Ребенку была выполнена операция: тораскопическая пластика диафрагмы (в плевральной полости находились петли кишечника, илеоцекальный угол и селезенка, дефект диафрагмы 4×2 см). Послеоперационный период – без особенностей. Девочка выписана из стационара в удовлетворительном состоянии на 4-е сутки после операции.

Через 1 месяц после операции по поводу рецидива ВДГ амбулаторно проведено контрольное обследование: рентгенография органов грудной клетки в стандартных прямой и левой боковой проекциях (рис. 3). Жалоб пациентка не предъявляет, со слов матери, девочка активная.

В литературе имеются различные данные о сроках возникновения и факторах риска рецидива ВДГ [6, 12, 13]. Ali Kamran et al. [10] из бостонской детской больницы, рассматривая факторы риска развития рецидивов ВДГ, которые произошли у 13 пациентов (общая частота рецидивов составила 19 %), отмечают, что рецидивы ВДГ случаются несмотря на хирургические методы пластики данного дефекта.

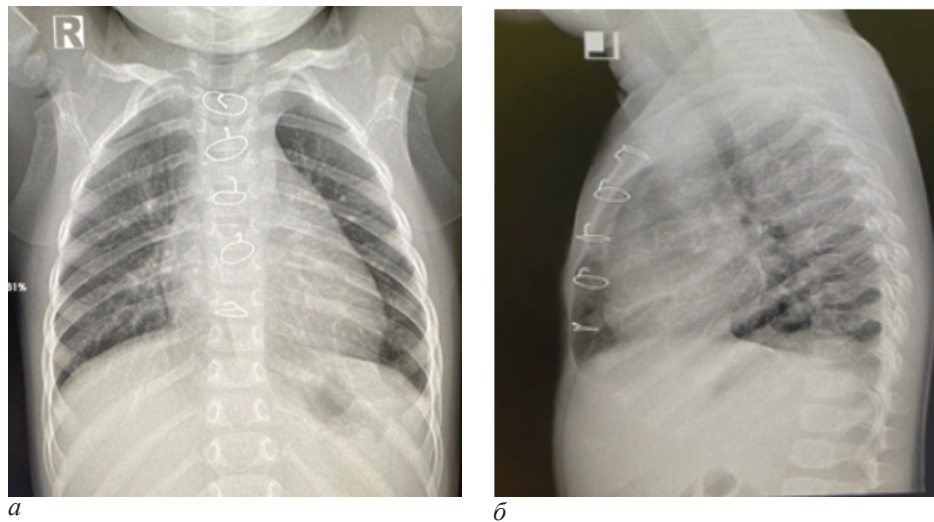


Рис. 3. На контрольных рентгенограммах органов грудной клетки в прямой и левой боковой проекциях определяется положительная рентген-динамика по сравнению с предыдущим исследованием: увеличение объема и улучшение пневматизации нижних отделов левого легкого. Сердце расположено обычно. Средостение контурируется четко.

Диафрагма с ровным четким контуром. Металлические скобки на груди

Fig. 3. The control chest X-rays in the direct and left lateral projections show positive X-ray – dynamics in comparison with the previous study: an increase in volume and improvement in pneumatization of the lower parts of the left lung. The heart is located normally. The mediastinum is clearly contoured. The diaphragm is with a smooth, clear contour. Metal braces are on the sternum

В некоторых случаях это острая ситуация, такая как ущемление [4, 5, 11]. В других случаях они могут протекать под маской «пневмонии» или, как в данном случае, с жалобами на одышку.

В ряде случаев ВДГ сочетается с различными ВПС: коарктация аорты (КоАо), дефекты перегородок, синдром гипоплазии левых отделов сердца и другие, они описаны в литературе, однако подходы к терапии меняются в течение последних лет [8, 14, 15]. Как правило, коррекция ВПС выполняется через 7–10 суток после лечения ВДГ. М. А. Абрамян и соавторы из Морозовской клинической больницы г. Москвы описывают резекцию КоАо на 10-е сутки после коррекции ВДГ и отмечают, что чаще всего КоАо в сочетании с ВДГ является компонентом гипоплазии левых отделов сердца, что приводит практически к 100 % летальности. Тем не менее в случае с изолированной КоАо результат лечения напрямую зависит от степени гипоплазии легких и персистирующей легочной гипертензии новорожденных, а не от КоАо, которая является хорошо корригируемым пороком сердца [1]. В данном случае у ребенка коррекция ВПС проводилась в 2 этапа: 1) суживание легочной артерии в возрасте 9 суток жизни (через 8 суток после коррекции ВДГ); 2) закрытие ДМЖП и пластика ЛА в возрасте 1 год 16 суток жизни. При этом в возрасте 1 года перед вторым этапом кардиохирургической операции по результатам МСКТ-ангиографии рецидива ВДГ не было.

Данное клиническое наблюдение является уникальным, так как рецидив ВДГ у ребенка был выявлен в результате рутинного рентгенологического исследования грудной клетки, выполненного по поводу одышки при физической нагрузке.

Закключение

Врожденная диафрагмальная грыжа, даже при успешной коррекции в период новорожденности,

может осложняться развитием рецидива, в том числе и в отдаленный период. Сочетание данного порока с ВПС требует более пристального внимания со стороны профильных специалистов и проведения рентгенографии грудной клетки при малейших подозрениях на это состояние.

Стандартная рентгенография органов грудной клетки, выполненная в плановом порядке, является доступным методом и «золотым стандартом» для ранней диагностики и выбора дальнейшей тактики лечения данного осложнения у детей в условиях амбулаторно-поликлинического звена. МСКТ-ангиография грудной и брюшной полости позволяет детализировать все компоненты при рецидиве ВДГ, а также оценить состояние легких, плевральной полости, структур средостения.

Конфликт интересов / Conflict of interest

Авторы заявили об отсутствии конфликта интересов. / The authors declare no conflict of interest.

Литература / References

1. Cordier AG, Russo FM, Deprest J et al. Prenatal diagnosis, imaging, and prognosis in congenital diaphragmatic hernia. *Semin Perinatol.* 2020;44(1):51163. Doi: 10.1053/j.semperi.2019.07.002.
2. Топольницкий Е.Б. Диафрагмальные грыжи: учеб. пособие / Е.Б. Топольницкий, Е.С. Дроздов, Р.А. Михед. – Томск: Изд-во СибГМУ, 2021. – С. 22–29. [Topolnitsky EB. Diaphragmatic hernias: a textbook / EB Topolnitsky, ES Drozdov, RA Mikhed. Tomsk, SibSMU Publishing House, 2021:22–29. (In Russ.).]
3. Лаптева Н.М., Богданова Л.М. Трудный диагноз: врожденная истинная диафрагмальная грыжа в практике врача-педиатра // Современная медицина: актуальные вопросы. – 2014. – № 31. – С. 43–48. [Lapteva NM, Bogdanova LM. Difficult diagnosis: true congenital diaphragmatic hernia in practice of pediatric physician. *Modern medicine: current issues.* 2014;(31):43–48. (In Russ.).]

4. Лосева Т.Ю. Рентгенологическая диагностика врожденной диафрагмальной грыжи // Бюлл. ВЧНЦ СО РАМН. – 2008. – Т. 3, № 61. – С. 97–98. [Loseva TY. X-ray diagnostics of congenital diaphragmatic hernia. Bull ESSC SB RAMS. 2008;3(61):97-98. (In Russ.)].
5. Al-Iede MM, Karpelowsky J, Fitzgerald D. Recurrence of diaphragmatic hernia: modifiable and unmodifiable risk factors. *Pediatr Pulmonol.* 2016;51(4):394-401. Doi: 10.1002/ppul.23305.
6. Ловская И.И., Чепурной М.Г., Чепурной Г.И. и др. Послеоперационные рецидивы врожденной диафрагмальной грыжи // Мед. вестн. Сев. Кавк. – 2014. – Т. 9, № 1. – С. 1–3. [Lovskaya II, Chepurnoy MG, Chepurnoy GI, Katsupuev VK, Rozin BG. Postoperative recurrence of congenital diaphragmatic hernia. *Med News North Caucasus.* 2014;9(1):1-3. (In Russ.)]. Doi: 10.14300/mnnc.2014.09005.
7. Kumbhar S, Siddiqui S, Thakrar P. Avoiding misdiagnosis in postnatal presentation of congenital diaphragmatic hernia: A report of two cases and review of radiologic features. *Radiol Case Rep.* 2019;14(10):1288-1292. Doi: 10.1016/j.radcr.2019.07.016.
8. Абрамян М.А., Подуровская Ю.Л., Буров А.А. и др. Сочетание врожденной диафрагмальной грыжи с коарктацией аорты // Акушерство и гинекол. – 2014. – № 3. – С. 78–80. [Abramyan MA, Podurovskaya YL, Burov AA, Volkova NN, Shetikova OV, Degtyarev DN, Sukhoi GT. Combination of congenital diaphragmatic hernia with aortic coarctation. *Obstetrics and gynecol.* 2014;(3):78-80. (In Russ.)]. Doi: 10.31550/1727-2378-2022-21-5-31-37.
9. Horiguchi K, Lee S-W, Shimizu T et al. Recurrence of a congenital diaphragmatic hernia 57 years postoperatively: A case report and review of the literature. *Medicine (Baltimore).* 2022;101(3):e28650. Doi: 10.1097/MD.00000000000028650.
10. Kamran A, Zendejas B, Demehri FR et al. Risk factors for recurrence after thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg.* 2018;53(11):2087-2091. Doi: 10.1016/j.jpedsurg.2018.04.007.
11. Nakanishi Y, Ozawa R, Kurahashi Y et al. A case report of diaphragmatic incisional hernia developed 18 years after application of diaphragmatic eventration in infancy. *J Jpn Surg Assoc.* 2019;80(3):508-512. Doi: 10.3919/jjsa.80.508.
12. Heiweggen K, van Heijst AF, Daniels-Scharbatke H et al. Congenital diaphragmatic eventration and hernia sac compared to CDH with true defects: A retrospective cohort study. *Eur J Pediatr.* 2020;179(6):855-863. Doi: 10.1007/s00431-020-03576-w.
13. Putnam LR, Gupta V, Tsao K et al. Factors associated with early recurrence after congenital diaphragmatic hernia repair. *J Pediatr Surg.* 2017;52(6):928-932. Doi: 10.1016/j.jpedsurg.2017.03.011.
14. Машинец Н.В. Диафрагмальная грыжа плода (диагностика, лечение, постнатальные исходы) // Акушерство и гинекол. – 2016. – № 2. – С. 20–26. [Mashinets NV. Diaphragmatic hernia of the fetus (diagnosis, treatment, postnatal outcomes). *Obstetrics and gynecol.* 2016;(2):20-26. (in Russ.)]. Doi: 10.18565/aig.2016.2.20-26.
15. Wagner R, Montalva L, Zani A, Keijzer R. Basic and translational science advances in congenital diaphragmatic hernia. *Semin Perinatol.* 2020;44(1):151170. Doi: 10.1053/j.semperi.2019.07.009.

Информация об авторах

Шапина Майя Константиновна – зав. отделения, врач-рентгенолог отделения рентгенологии, СПб ГБУЗ «Детская городская поликлиника № 68», Санкт-Петербург, Россия, ORCID: 0009-0001-4628-6310, e-mail: majyashapina@yandex.ru.

Ильина Наталья Александровна – д-р мед. наук, профессор кафедры лучевой диагностики, Северо-Западный государственный медицинский университет имени И. И. Мечникова; врач-рентгенолог отделения лучевой диагностики, Детский городской многопрофильный клинический специализированный центр высоких медицинских технологий, Санкт-Петербург, Россия, ORCID: 0000-0003-2657-8778, e-mail: ilyina-natal@mail.ru.

Гурова Мария Игоревна – канд. мед. наук, врач-педиатр высшей категории, зав. поликлинического отделения № 68, СПб ГБУЗ «Детская городская поликлиника № 68», Санкт-Петербург, Россия, ORCID: 0009-0006-0376-5529, e-mail: guzdp68po68@mail.ru.

Authors information

Shapina Maiia K. – Radiologist, SOGAZ Multidisciplinary Medical Centre, Head, Radiology Department, Children's City Polyclinic № 68, Saint Petersburg, Russia, ORCID: 0009-0001-4628-6310, e-mail: majyashapina@yandex.ru.

Ilyina Natalia A. – MD, Professor, Radiology Department, North-Western State Medical University named after I. I. Mechnikov, Saint-Petersburg children's municipal multi-specialty clinical center of high medical technology, Saint Petersburg, Russia, ORCID: 0000-0003-2657-8778, e-mail: ilyina-natal@mail.ru.

Gurova Maria I. – High-Category Pediatrician, Candidate of Medical Sciences (PhD), Head, Outpatient Department, Children's City Polyclinic № 68, Saint Petersburg, Russia, ORCID: 0009-0006-0376-5529, e-mail: guzdp68po68@mail.ru.