

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD70922>

Длительный анамнез бронхоцеле, вызванный типичным карциноидом

К.В. Прусакова, П.В. Гаврилов

Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии, Санкт-Петербург, Российская Федерация

АННОТАЦИЯ

В работе представлен клинический случай с длительным периодом наблюдения одиночного бронхоцеле (бронхогенной ретенционной кисты). При первоначальном комплексном обследовании, включающем такие исследования, как рентгенография, компьютерная томография органов грудной полости, фибробронхоскопия, иммунологические и бактериологические обследования на туберкулёз, данных за онкологическую и инфекционную природу изменений не выявлено. Изменения были расценены как последствия перенесённого неспецифического воспалительного процесса. Через 15 лет при плановом медицинском осмотре по данным рентгенографии органов грудной полости отмечено увеличение размеров бронхоцеле, а также появление округлого образования в медиальных отделах бронхоцеле. С помощью дополнительных методов исследования, таких как компьютерная томография органов грудной полости с внутривенным контрастированием, фибробронхоскопия с биопсией, установлено, что выявленное образование является типичным карциноидом.

Несмотря на то что бронхоцеле в большинстве случаев является доброкачественным изменением, из разнообразия причин, вызывающих его развитие, следует выделить обструкцию бронха новообразованием. Среди новообразований лёгкого типичный карциноид составляет всего 1–2%, характеризуется крайне медленным ростом и отсутствием специфичной клинической симптоматики. Несмотря на это, типичный карциноид относится к злокачественным нейроэндокринным образованиям I типа. В 10–15% случаев выявляются метастазы, преимущественно в медиастинальные лимфатические узлы, а также в печень, кости, реже в мягкие ткани.

Данное клиническое наблюдение говорит о том, что даже при отрицательных результатах первичного обследования локально расположенного бронхоцеле такие изменения требуют онкологической настороженности и периодических обследований в динамике.

Ключевые слова: клинический случай; бронхоцеле; типичный карциноид; компьютерная томография.

Как цитировать

Прусакова К.В., Гаврилов П.В. Длительный анамнез бронхоцеле, вызванный типичным карциноидом // *Digital Diagnostics*. 2021. Т. 2, № 2. С. 223–230. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD70922>

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD70922>

Long-term bronchocele anamnesis, triggered by typical carcinoid

Kseniya V. Prusakova, Pavel V. Gavrilov

Saint-Petersburg State Research Institute of Phthisiopulmonology, Saint Petersburg, Russian Federation

ABSTRACT

The paper presents a case of a single bronchocele (bronchogenic retention cyst) caused by a typical carcinoid that was observed for a long time. During the initial complex examination, including computed tomography with intravenous contrast, fibrobronchoscopy, and immunological and bacteriological examinations of tuberculosis, there were no changes for the oncological and infectious nature. The changes were interpreted as the result of a postponed nonspecific inflammatory process. Most of them were monitored using chest X-ray and the changes were stable. After 15 years, a control chest X-ray revealed an increase in the size of the compaction in the lung and the appearance of a mass with calcification in the medial sections of the compaction zone. Additional examination, including computed tomography with biopsy, determined that the obstruction of the bronchus was caused by a neoplasm [according to histological examination (typical carcinoid)].

It should be noted that the initial detection of negative study results requires oncological alertness and periodic examinations in dynamics.

Keywords: case report; bronchocele; typical carcinoid; computed tomography.

To cite this article

Prusakova KV, Gavrilov PV. Long-term bronchocele anamnesis, triggered by typical carcinoid. *Digital Diagnostics*. 2021;2(2):223–230. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD70922>

Received: 23.05.2021

Accepted: 23.06.2021

Published: 01.07.2021

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD70922>

由典型的类癌引起的支气管囊肿的悠久历史

Kseniya V. Prusakova, Pavel V. Gavrilov

Saint-Petersburg State Research Institute of Phthisiopulmonology, Saint Petersburg, Russian Federation

简评

本文提出了一个长期观察单个支气管囊肿（支气管源性保留囊肿）的临床病例。在最初的全方位检查中，包括放射照相术，胸腔计算机断层扫描，纤维支气管镜检查，结核病的免疫学和细菌学检查等研究，没有发现改变的肿瘤和感染性的数据。这些变化被视为转移非特异性炎症过程的后果。15年后，在常规体检期间，根据胸腔的射线照相，注意到支气管的大小增加，以及支气管囊肿内侧部分圆形出现。在其他研究方法的帮助下（例如胸腔静脉造影的计算机断层扫描，活检的纤维支气管镜检查），确定检测到的形成是典型的类癌。

尽管在大多数情况下，支气管囊肿是一种良性变化，但从导致其发展的各种原因来看，有必要通过肿瘤来区分支气管囊肿的阻塞。在肺部肿瘤中，典型的类癌仅为1-2%，其特征在于极其缓慢的生长和没有特定的临床症状。尽管如此，典型的类癌属于第一类型恶性神经内分泌形成。在10-15%的病例中，检测到转移，主要在纵隔淋巴结中，以及在肝脏，骨骼中，在软组织中较少。

这一临床观察表明，即使对局部定位的支气管囊肿的初步检查结果为阴性，这种变化也需要肿瘤警觉性和动态的定期检查。

关键词： 临床病例； 支气管囊肿； 典型类癌； 计算机断层扫描。

引用本文：

Prusakova KV, Gavrilov PV. 由典型的类癌引起的支气管囊肿的悠久历史。 *Digital Diagnostics*. 2021;2(2):223-230.

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD70922>

收到: 23.05.2021

接受: 23.06.2021

发布日期: 01.07.2021

绪论

支气管囊肿（支气管滞留囊肿，粘液囊肿）是一种相对常见的发现。支气管囊肿的形态学基质是支气管局部扩张，由于粘膜持续分泌和气道近端阻塞而使气道充满粘液内容物[1]。射线照相和计算机断层扫描中，支气管囊肿可视为与支气管树相关的管状分支 V 或 Y 形结构（“戴手套的手指”的症状）[2]。内容物的结构是均质的，但 30% 的情况下，在结构中可以看到致密的包裹体 - 钙化 [2, 3]。带有静脉对比增强的计算机断层扫描不会积累对比剂。

某些情况下支气管囊肿可以呈椭圆形或圆形，这取决于闭塞的支气管的大小、腔内内容物的数量以及周围肺实质的状态。

孤立性局部滞留囊肿无症状。引起滞留囊肿的原因非常广泛：先天性病理（支气管闭锁、肺隔离症、囊性纤维化）；感染性病理学（非特异性炎症过程、结核、分枝杆菌病、过敏性支气管肺曲霉菌病）；支气管阻塞由于教育（良性，恶性），异物或支气管的瘢痕性变形造成的支气管阻塞。由于各种原因引起的支气管膨出具有相似的放射学符号，鉴别诊断变得复杂[2]。

由于各种原因引起的支气管膨出具有相似的放射学符号，鉴别诊断变得复杂[2]。这种情况下计算机断层扫描和静脉造影是首选的诊断方法[2]。

大多数情况下，支气管囊肿是由肺部的良性变化引起的，不需要动态观察，然而，如果存在局部支气管，则应通过形成或异物排除周围发生。为此，建议使用纤维支气管镜检查 and 活检来补充放射研究方法 [4, 5]。

目前还没有一个诊断算法来确定支气管扩张的原因，正如对首次发现的无症状视网膜囊肿（支气管囊肿）患者的进一步观察没有统一的建议。

病例报告

病人为男，五十六岁，已向放射诊断科申请进行胸腔器官电脑断层扫描。

从记忆中得知，15年前，他接受了肺炎检查。尽管有积极的趋势，临床研究表明，在抗菌治疗的背景下，X射线数据与肺炎患者肺部浸润性变化的典型回归趋势不一致。根据胸腔器官X线检查，右肺中段确定了管状分枝结构的压实部位(图1, a).作为补充研究，进行了静脉对照胸腔器官计算机断层扫描、纤维支气管镜检查，免疫和细菌学研究，没有结核病和肿瘤学的数据。计算机断层扫描的结果是在胶片载体上进行选择性扫描，它显示了一个具有均匀清晰轮廓的局部单位分支结构，位于右肺中叶的亚段支气管（“手套中的手指”症状），内容均匀(图2).诊断为右肺中叶支气管原发性视网膜囊肿（支气管癌）。随后，每年对胸腔器官进行X线检查，所显示的变化是稳定的。

此时，在进行有害工作条件的工作体检时，根据胸部器官的X光片显示，先前确定的支气管囊肿的大小也有所增加(图1b)在支气管囊肿的中间部分形成一个新的圆形结构，沿着结构的轮廓有钙化(图 1b)。为了明确患者的变化性质，对胸腔器官进行了计算机断层扫描，并进行了静脉

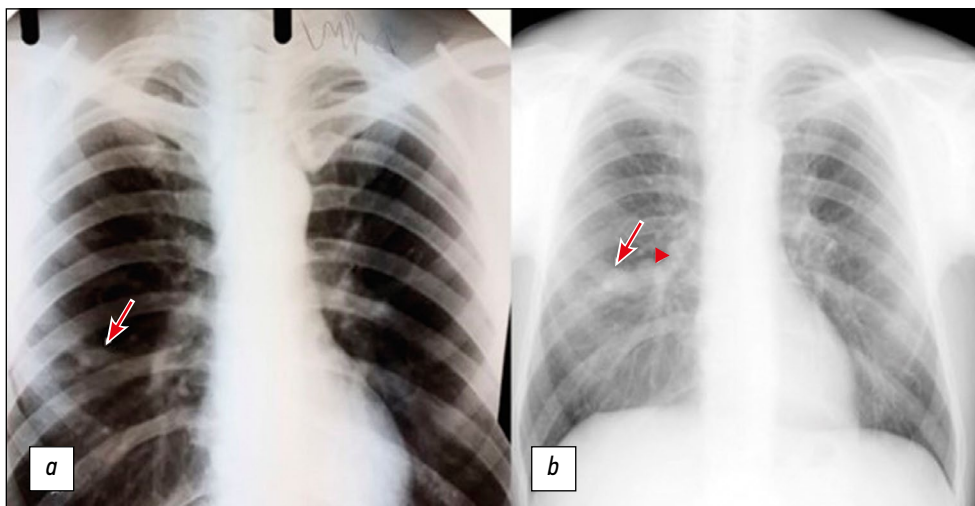


图 1患者，56 岁，胸腔器官的 X 光片：a - 在 41 岁时在右肺中段进行初步检查时，确定了分支管状结构的压实面积（箭）；b - 15 年后，支气管囊肿（箭头）的大小增加，支气管囊肿（箭头）的内侧部分出现圆形结构。

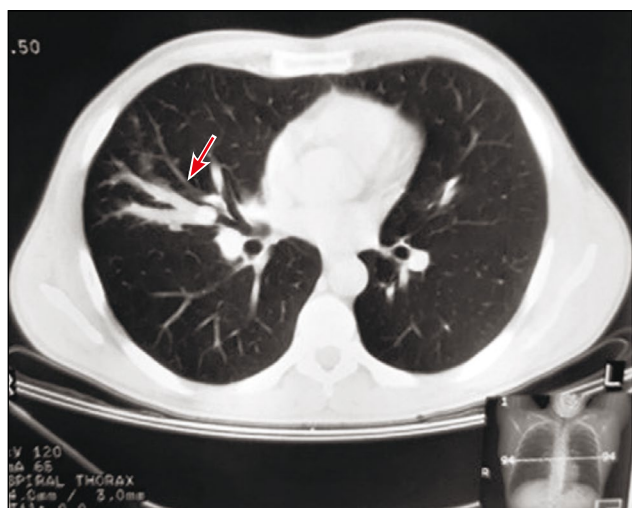


图 2 同样的病人。胸腔器官计算机断层扫描选择性扫描：右肺中叶均匀V形结构，轮廓清晰（箭头）。

对照检查。根据该研究，右肺中段保留了V形的单位分叉结构，轮廓清晰，内容均匀，位于运动中的亚段支气管（“手套中的手指”症状）。支气管囊肿的基部，确定了一个具有平滑、清晰轮廓的圆形结构，它几乎完全与支气管 B4 的管腔重叠和沿周边的单个钙化，在静脉期从 + 29HU 到 + 112HU 有造影剂积聚的迹象（图 3）。这些变化是由肿瘤阻塞支气管引起的支气管囊肿的

特征。作为额外的研究方法，进行了活检的纤维支气管镜检查。支气管镜检查中，观察到B4口的圆形形成，完全覆盖支气管间隙（图4）。地层不活跃，接触易损，表面粘膜充血、水肿。根据活检结果，发现该地层的组织学图片对应于典型的类癌。免疫组化研究中肿瘤细胞强烈表达CD56，不表达 TTF1。增殖活性指数KI672%。患者在右肺中叶切除范围内进行手术治疗。根据胸腔器官的计算机断层扫描，一年后的随访检查显示没有类癌复发的迹象。

讨论

多发性支气管囊肿形成的最常见原因是囊性纤维化、过敏性支气管肺曲霉菌病和肺结核。孤立性局部滞留囊肿更常由肿瘤（良性或恶性）阻塞支气管引起[2, 6]。

肺肿瘤中，典型的类癌仅占1-2%[7]。70%的病例中，肿瘤位于支气管中，更常见于右肺，主要位于中叶[8]。典型类癌患者的平均年龄为 40-50岁。这种形式的肺部肿瘤中，与致癌物和吸烟的影响没有明显的关系[9, 10]。

大多数情况下，支气管类癌是无症状的，在常规检查中被检测为意外发现，然而，在2-5%的病

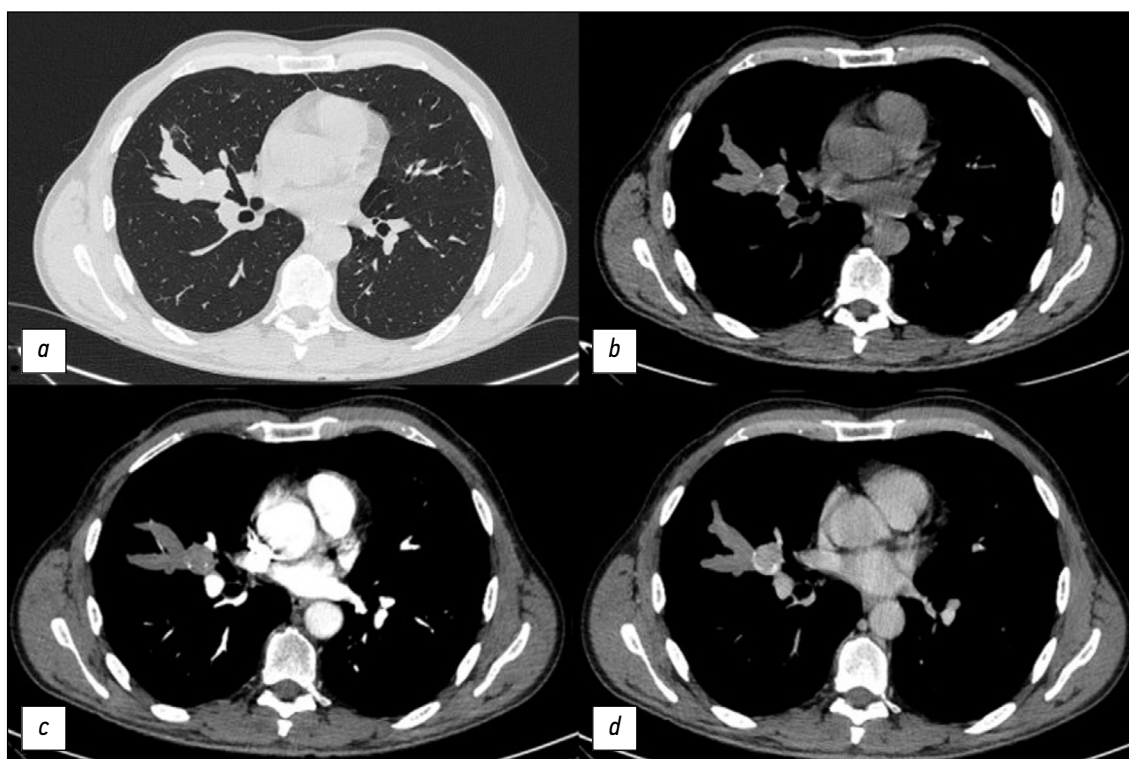


图 3 同样的病人。轴向平面中胸腔器官的计算机断层扫描：a - 肺窗，自然期（支气管囊肿底部的圆形形成）； b - 纵隔窗（沿地层外围的单一钙化）； c - 纵隔窗，动脉期； d - 纵隔窗，静脉期（造影剂形成积聚的迹象）。

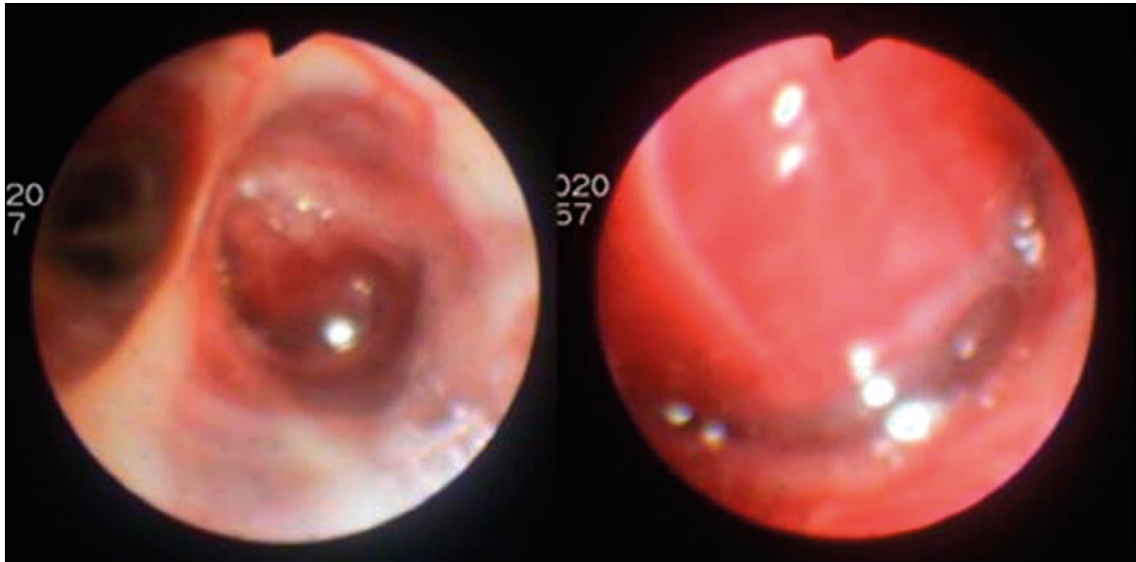


图 4 同样的病人。纤维支气管镜：右侧形成B4口，完全覆盖支气管管腔。

例中，支气管类癌可以产生神经胺和肽激素（血清素、促肾上腺皮质激素、生长抑素和缓激肽）[11]。类癌综合征的临床表现包括周期性潮热或血液涌向头、颈和手臂的感觉、支气管痉挛、腹泻和精神障碍[11-13]。

X 光片上可以看到典型的类癌是呈圆形或椭圆形，轮廓清晰、均匀（有时呈小叶状）。经常（高达 30% 的病例）存在偏心或弥漫性钙化[2, 3]。

计算机断层扫描中，典型的类癌可视为具有清晰、均匀或裂片轮廓的圆形结构。通过静脉造影可以观察到造影剂的积聚；在某些情况下，可以追踪供血动脉，这适用于支气管动脉系统的形成[6]。关于支气管类癌位于支气管内、支气管外，呈混合“冰山”状，导致支气管腔部分或完全阻塞[2, 3]。

尽管在最初的综合检查中，该临床实例中支气管膨出的原因尚未确定，但通过对胶片载体上呈现的计算机断层扫描数据的回顾性评估，可以假设在支气管囊肿的基部（图 2）。由于其位于支气管外，可能无法检测到纤维支气管镜检查期间的变化。

位于视网膜囊肿底部的密度测量形成参数可能与粘液没有太大区别，而且在其体积小的情况下，可视化可能会变得困难。当检测到阻塞的迹象（肺不张、“空气陷阱”、支气管囊肿）时，可能怀疑中枢型类癌。

典型类癌的鉴别应与II型肺（非典型类癌）、支气管囊肿、支气管囊肿的神经内分泌形成有关。

典型的类癌生长极其缓慢。根据 D. Raz和合著者[14]典型类癌的平均倍增时间为7年，因此很难根据每年的肺部预防性X线片来判断是否存在动态，因为肉眼很难发现地层大小略有增加。作者认为尽管根据X射线数据明显缺乏动力学，但在局部存在性质未知的支气管囊肿的情况下，应定期进行胸腔器官计算机断层扫描和静脉造影的对照研究，以可靠地评估变化的动力学，排除肿瘤引起的支气管阻塞。

计算机断层扫描是首选的诊断方法。然而，鉴于典型类癌位置的特殊性，许多作者推荐纤维支气管镜检查检查和经支气管活检作为补充研究方法[4, 5, 15]。

手术切除是治疗典型类癌的金标准，因为它对化学和放疗的敏感性较低。如果癌细胞完全位于中心部位，则可采用经支气管切除术[6、8、13]。

结论

尽管在大多数情况下，支气管炎是一种良性变化，如果发现局部支气管狭窄，应排除支气管梗阻的肿瘤学性质，为此，建议进行静脉造影的胸腔CT扫描，并进行活检的纤维支气管镜检查。

应该记住，某些类型的肿瘤，例如典型的类癌，其特征是生长极其缓慢，即使局部支气管囊肿的初步检查结果为阴性，这些变化也需要随着时间的推移保持肿瘤学警觉和定期检查。

附加信息

资金来源。作者声称，在撰写和出版这篇文章时，没有外部资金。

利益冲突。作者声明，没有明显的和潜在的利益冲突相关的发表这篇文章。

作者贡献。K.V. Prusakova – 收集材料，写一篇文章； P.V. Gavrilov – 处理获得的结果，

最终编辑出版物。 所有作者都确认其作者符合国际ICMJE标准（所有作者为文章的概念，研究和准备工作做出了重大贡献，并在发表前阅读并批准了最终版本）。

知情同意出版。患者签署了自愿知情同意书，以非个人形式发布医疗信息。

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ

1. Hansell D.M., Bankier A.A., MacMahon H., et al. Fleischner Society: glossary of terms for thoracic imaging // *Radiology*. 2008. Vol. 246, N 3. P. 697–722. doi: 10.1148/radiol.2462070712
2. Martinez S., Heyneman L.E., McAdams H.P., et al. Muroid impactions: finger-in-glove sign and other CT and radiographic features // *Radiographics*. 2008. Vol. 28, N 5. P. 1369–1382. doi: 10.1148/rg.285075212
3. Nguyen E.T. The gloved finger sign // *Radiology*. 2003. Vol. 227, N 2. P. 453–454. doi: 10.1148/radiol.2272011548
4. Farrell C., Goggins M., Casserly M. Unexpected diagnosis resulting from presentation with chronic obstructive pulmonary disease (COPD) exacerbation // *International Journal of Case Reports and Images*. 2019;43–47. doi: 10.36811/jcri.2019.110007
5. Kulkarni G.S., Gawande S.C., Chaudhari D.V., Bhojar A.P. Bronchial carcinoid: case report and review of literature // *MVP J Med Sci*. 2016. Vol. 3, N 1. P. 71–78. doi: 10.18311/mvpjms/2016/v3/i1/740
6. Yadav V., Rath V. Bronchial carcinoid with bronchocele masquerading as Scimitar syndrome on chest radiograph // *Radiol Case Rep*. 2021. Vol. 16, N 3. P. 710–713. doi: 10.1016/j.radcr.2021.01.013
7. Jeung M.Y., Gasser B., Gangi A., et al. Bronchial carcinoid tumors of the thorax: spectrum of radiologic findings // *Radiographics*. 2002. Vol. 22, N 2. P. 351–365. doi: 10.1148/radiographics.22.2. g02mr01351
8. Paladugu R.R., Benfield J.R., Pak H.Y., et al. Bronchopulmonary Kulchitzky cell carcinomas. A new classification scheme for typical

- and atypical carcinoids // *Cancer*. 1985. Vol. 55, N 6. P. 1303–1311. doi: 10.1002/1097-0142(19850315)55:6<1303::aid-cnrcr2820550625>3.0.co;2-a
9. Grote T.H., Macon W.R., Davis B., et al. Atypical carcinoid of the lung. A distinct clinicopathologic entity // *Chest*. 1988. Vol. 93, N 2. P. 370–375. doi: 10.1378/chest.93.2.370
 10. Harpole D.H., Feldman J.M., Buchanan S., et al. Bronchial carcinoid tumors: a retrospective analysis of 126 patients // *Ann Thorac Surg*. 1992. Vol. 54, N 1. P. 50–54; discussion 54–5. doi: 10.1016/0003-4975(92)91139-z
 11. Кузнецов Н.С., Латкина Н.В., Добрева Е.А. АКТГ — эктопированный синдром: клиника, диагностика, лечение // *Эндокринная хирургия*. 2012. Т. 6, № 1. С. 24–36.
 12. Бурякина С.А., Кармазановский Г.Г., Волеводз Н.Н., и др. КТ-признаки нейроэндокринных опухолей легких и их взаимосвязь с АКТГ-эктопическим синдромом // *REJR*. 2018. Т. 8, № 4. С. 56–72. doi: 10.21569/2222-7415-2018-8-4-56-72
 13. Трахтенберг А.Х., Колбанов К.И., Франк Г.А., и др. Особенности диагностики и лечения карциноидных опухолей легких // *Атмосфера. Пульмонология и аллергология*. 2009. № 1. С. 2–6.
 14. Raz D.J., Nelson R.A., Grannis F.W., Kim J.Y. Natural history of typical pulmonary carcinoid tumors: a comparison of nonsurgical and surgical treatment // *Chest*. 2015. Vol. 147, N 4. P. 1111–1117. doi: 10.1378/chest.14-1960
 15. Kaifi J.T., Kayser G., Ruf J., Passlick B. The diagnosis and treatment of bronchopulmonary carcinoid // *Dtsch Arztebl Int*. 2015. Vol. 112, N 27–28. P. 479–485. doi: 10.3238/arztebl.2015.0479

REFERENCES

1. Hansell DM, Bankier AA, MacMahon H, et al. Fleischner Society: glossary of terms for thoracic imaging. *Radiology*. 2008;246(3):697–722. doi: 10.1148/radiol.2462070712
2. Martinez S, Heyneman LE, McAdams HP, et al. Muroid impactions: finger-in-glove sign and other CT and radiographic features. *Radiographics*. 2008;28(5):1369–1382. doi: 10.1148/rg.285075212
3. Nguyen ET. The gloved finger sign. *Radiology*. 2003;227(2):453–454. doi: 10.1148/radiol.2272011548
4. Farrell C, Goggins M, Casserly M. Unexpected diagnosis resulting from presentation with chronic obstructive pulmonary disease (COPD) exacerbation. *International Journal of Case Reports and Images*. 2019;43–47. doi: 10.36811/jcri.2019.110007
5. Kulkarni GS, Gawande SC, Chaudhari DV, Bhojar AP. Bronchial carcinoid: case report and review of literature. *MVP J Med Sci*. 2016;3(1):71–78. doi: 10.18311/mvpjms/2016/v3/i1/740
6. Yadav V, Rath V. Bronchial carcinoid with bronchocele masquerading as Scimitar syndrome on chest radiograph. *Radiol Case Rep*. 2021;16(3):710–713. doi: 10.1016/j.radcr.2021.01.013
7. Jeung MY, Gasser B, Gangi A, et al. Bronchial carcinoid tumors of the thorax: spectrum of radiologic findings. *Radiographics*. 2002;22(2):351–365. doi: 10.1148/radiographics.22.2. g02mr01351
8. Paladugu RR, Benfield JR, Pak HY, et al. Bronchopulmonary Kulchitzky cell carcinomas. A new classification scheme for typical and atypical carcinoids. *Cancer*. 1985;55(6):1303–1311. doi: 10.1002/1097-0142(19850315)55:6<1303::aid-cnrcr2820550625>3.0.co;2-a
9. Grote TH, Macon WR, Davis B, et al. Atypical carcinoid of the lung. A distinct clinicopathologic entity. *Chest*. 1988;93(2):370–375. doi: 10.1378/chest.93.2.370. PMID: 2827965
10. Harpole DH, Feldman JM, Buchanan S, et al. Bronchial carcinoid tumors: a retrospective analysis of 126 patients.

Ann Thorac Surg. 1992;54(1):50–54; discussion 54–5. doi: 10.1016/0003-4975(92)91139-z

11. Kuznetsov NS, Latkina NV, Dobrova EA. ACTH-ectopic syndrome: clinic, diagnosis, treatment. *Endocrine surgery.* 2012;6(1):24–36. (In Russ).

12. Buryakina SA, Karmazanovsky GG, Volevodz NN, et al. CT-signs of neuroendocrine lung tumors and their relationship with ACTH-ectopic syndrome. *REJR.* 2018;8(4):56–72. (In Russ). doi: 10.21569/2222–7415-2018-8-4-56-72

13. Trachtenberg AH, Kolbanov KI, Frank GA, et al. Features of diagnosis and treatment of lung carcinoid tumors. *Atmosphere. Pulmonology and allergology.* 2009;(1):2–6. (In Russ).

14. Raz DJ, Nelson RA, Grannis FW, Kim JY. Natural history of typical pulmonary carcinoid tumors: a comparison of nonsurgical and surgical treatment. *Chest.* 2015;147(4):1111–1117. doi: 10.1378/chest.14-1960

15. Kaifi JT, Kayser G, Ruf J, Passlick B. The diagnosis and treatment of bronchopulmonary carcinoid. *Dtsch Arztebl Int.* 2015;112(27-28):479–485. doi: 10.3238/arztebl.2015.0479

ОБ АВТОРАХ

* **Гаврилов Павел Владимирович**, к.м.н.;

адрес: Россия, 191036, Санкт-Петербург, Лиговский пр., д. 2-4;

e-mail: spbniifrentgen@mail.ru;

ORCID: <https://orcid.com/0000-0003-3251-4084>

Прусакова Ксения Владимировна;

e-mail: ksenya.rush@mail.ru;

ORCID: <https://orcid.com/0000-0002-3934-6290>

AUTHORS' INFO

* **Pavel V. Gavrilov**, MD, Cand. Sci. (Med.);

address: 2-4, Ligovskiy pr., Saint-Petersburg, 191036, Russia;

e-mail: spbniifrentgen@mail.ru;

ORCID: <https://orcid.com/0000-0003-3251-4084>

Kseniya V. Prusakova, MD;

e-mail: ksenya.rush@mail.ru;

ORCID: <https://orcid.com/0000-0002-3934-6290>

* Автор, ответственный за переписку / Corresponding author