Вестник оториноларингологии
2019, Т. 84, №4, с. 48-50
https://doi.org/10.17116/otorino20198404148

Vestnik Otorinolaringolii
2019, vol. 84, №4, pp. 48-50
https://doi.org/10.17116/otorino20198404148

Случай амилоидоза гортани у 13-летней девочки

© К.м.н., доц. М.В. СУББОТИНА[1], Т.Д. ПРИХОДЬКО[2], А.О. БАРАКИН[2], к.м.н., доц. К.Ю. КОСТЮНИН[3]

[1]Кафедра оториноларингологии (зав. — к.м.н., доц. М.В. Субботина) ФГБОУ ВО «Иркутский государственный медицинский университет» Минздрава России, Иркутск, Россия, 664025;
[2]ГБУЗ «Иркутская государственная областная детская клиническая больница» (глав. врач — д.м.н. Г.В. Гвак), Иркутск, Россия, 664022;
[3]ОГАУЗ «Иркутский областной клинический консультативно-диагностический центр» (глав. врач — к.м.н. И.В. Ушаков), Иркутск, Россия, 664047

РЕЗЮМЕ

Амилоидоз гортани встречается очень редко, особенно у детей. Цель исследования — демонстрация клинического случая амилоидоза гортани у 13-летней девочки с охриплостью, увеличением правой вестибулярной складки без нарушения подвижности гортани. Первоначально была заподозрена опухоль гортани. В распознавании размеров процесса в гортани наряду с фиброларингоскопией были информативны мультиспиральная компьютерная томография и ультразвуковое сканирование гортани. Было выполнено микрохирургическое удаление образования, при его гистологическом исследовании и окраске конго красным был диагностирован амилоидоз. Системных проявлений заболевания не выявили.

Ключевые слова: амилоидоз гортани, ультразвуковое сканирование гортани, КТ гортани, дифференциальная диагностика заболеваний гортани.

ИНФОРМАЦИЯ ОБ АВТОРАХ:

Субботина М.В. — e-mail: lor-igmu@yandex.ru; https://orcid.org/0000-0002-3663-3577
Приходько Т.Д. — e-mail: dr.t.prikhodko@yandex.ru; https://orcid.org/0000-0002-3301-6119
Баракин А.О — e-mail: igodkb@igodkb.ru, https://orcid.org/0000-0003-1767-811X
Костюнин К.Ю. — https://orcid.org/0000-0002-7956-3804
Автор, ответственный за переписку: Субботина М.В. — e-mail: lor-igmu@yandex.ru

КАК ЦИТИРОВАТЬ:

Субботина М.В., Приходько Т.Д., Баракин А.О., Костюнин К.Ю. Случай амилоидоза гортани у 13-летней девочки. *Вестник оториноларингологии.* 2019;84(4):48-50. https://doi.org/otorino20198404148

A case report of amyloidosis of the larynx in a 13-year-old girl

© M.V. SUBBOTINA[1], T.D. PRIKHODKO[2], A.O. BARAKIN[2], K.YU. KOSTYUNIN[3]

[1]Irkutsk state medical University, Irkutsk, Russia, 664025;
[2]Irkutsk state regional children's clinical hospital, Irkutsk, Russia, 664022;
[3]Irkutsk regional clinical consultative and diagnostic center, Irkutsk, Russia, 664047

ABSTRACT

Amyloidosis of the larynx is rare in the pediatric age group. We present a clinical case of laryngeal amyloidosis manifesting as false vocal fold bulging in a thirteen-year-old girl with hoarseness and with initial suspicion of laryngeal tumor. Computed tomography and ultrasound scanning of the larynx were useful in determining the laryngeal process size along with fibro laryngoscopy. There was performed a microsurgical removal of the larynx formation. The results of Congo red staining of the formation were characteristic of amyloid. Systemic manifestations of the disease were not revealed.

Keywords: laryngeal amyloidosis, ultrasound scanning of the larynx, computed tomography of the larynx, differential diagnosis of laryngeal diseases.

INFORMATION ABOUT THE AUTHORS:

Subbotina M.V. — e-mail: lor-igmu@yandex.ru; https://orcid.org/0000-0002-3663-3577
Prikhodko T.D. — e-mail: dr.t.prikhodko@yandex.ru; https://orcid.org/0000-0002-3301-6119
Barakin A.O. — e-mail: igodkb@igodkb.ru; https://orcid.org/0000-0003-1767-811X
Kostyunin K.Yu. — e-mail: kostjunin@gmail.com; https://orcid.org/0000-0002-7956-3804
Corresponding author: Subbotina M.V. — e-mail: lor-igmu@yandex.ru

TO CITE THIS ARTICLE:

Subbotina MV, Prikhodko TD, Barakin AO, Kostyunin KYu. A case report of amyloidosis of the larynx in a 13-year-old girl. *Vestnik Otorinolaringolii*. 2019;84(4):48-50. (In Russ.). https://doi.org/otorino20198404148

Принятые сокращения:

ИГОДКБ — Иркутская государственная областная детская клиническая больница
МСКТ — мультиспиральная компьютерная томография
УЗИ — ультразвуковое исследование
ФЛС — фиброларингоскопия
ЦДК — цветовое допплеровское сканирование

Амилоидоз (amyloidosis) — системное заболевание, характеризующееся отложением в различных тканях и органах фибриллярного гликопротеида амилоида, что в переводе с греческого означает «крахмал», так как он в реакции с йодом окрашивается синим цветом [1, 2]. Частота встречаемости данной патологии 1:50 000 или 5—10 случаев на 1 млн в год, в 20% наблюдений в процесс вовлечены голова и шея [3]. Возникает заболевание в основном в возрасте после 40 лет [4], преобладают мужчины в соотношении 3:1, описаны варианты семейного амилоидоза [2, 3, 5]. Амилоидоз приводит к атрофии, склерозу и недостаточности различных органов. Причины преимущественного поражения тех или иных органов (почек, печени, сердца, кишечника, кожи) неизвестны. Проявления зависят от локализации и распространенности амилоидных отложений. Биопсия органов и окраска на амилоид — наиболее информативный метод диагностики заболевания. Патогенетического лечения нет. В России амилоидоз дыхательных путей впервые описал Л.И. Свержевский в 1910 г. [1]. В большинстве случаев при этом выявляют AL-тип амилоидоза с поражением гортани и преимущественным отложением амилоида в голосовых складках, иногда под ними и в желудочках гортани в виде ограниченных или множественных узлов, чаще бледно-желтого цвета деревянистой консистенции, напоминающих опухоль, протекает бессимптомно, или вызывает дисфонию [1, 6, 7]. Амилоидоз гортани встречается в 0,2—1,2% всех случаев доброкачественных опухолей гортани, в 2,5% всех случаев амилоидоза, мультиорганное поражение при этом встречается редко, в 86—100% наблюдений требуется хирургическое лечение, в том числе неоднократное. Показанием для проведения хирургического лечения являются нарушения дыхания или голоса [1, 8—10]. Оперативное лечение может включать баллонную дилатацию, воздействие микродебридером, лазером или коблатором и даже ларингэктомию [7]. При амилоидозе обычно хороший прогноз, заболевание может стабилизироваться, но возможны рецидивы и даже летальные случаи в результате обструкции дыхательных путей или кровотечения [2, 11, 12]. Для исключения системного поражения применяют сцинтиграфию с радиоактивным сывороточным амилоидом Р [13].

У детей амилоидоз гортани встречается крайне редко. Описано только 11 наблюдений, самому младшему ребенку было 8 лет [3, 14—18]. Приводим клиническое наблюдение амилоидоза гортани у девочки-подростка.

Пациентка Л., 13 лет, обратилась в апреле 2017 г. к фониатру с жалобами на постоянную осиплость голоса, усталость при разговоре. Из анамнеза стало известно, что жалобы появились 6 мес назад после перенесенной острой респираторной инфекции, пациентку лечили и наблюдали педиатр и оториноларинголог поликлиники с диагнозом «подострый катаральный ларингит». Лечение включало ингаляции с суспензией гидрокортизона, прием антигистаминных препаратов, антисептиков в горло. Осиплость периодически исчезала, голосовая функция улучшалась, но до нормы не восстановилась. После непрямой ларингоскопии заподозрена опухоль гортани. 27.04.17 проведена мультиспиральная компьютерная томография (МСКТ) гортани с внутривенным усилением. Заключение: картина объемного образования вестибулярной складки гортани справа 13×13,9×10,1 мм, плотностью 35—40 ед. Н, образование минимально накапливает контраст **(рис. 1, на цв. вклейке)**. 04.05.17 пациентка консультирована онкологом и оториноларингологом в Иркутской областной детской клинической больнице (ИГОДКБ): при обследовании голос хриплый, дыхание свободное, без участия вспомогательных мышц, глотание жидкостей и твердых продуктов не затруднено, при риноскопии, фарингоскопии и отоскопии патологии не выявлено, лимфоузлы шеи не пальпируются, гортань при пальпации подвижна, безболезненна, кожа над ней не изменена. Были выполнены УЗИ и фиброскопия гортани: надгортанник, голосовые складки не изменены, подвижны, при фонации смыкаются полностью по средней линии вместе с вестибулярными, отмечается выраженное утолщение правой вестибулярной складки, ее поверхность розовая, гладкая, практически полностью прикрывает правую голосовую складку **(рис. 2, на цв. вклейке)**. Был поставлен предварительный диагноз: киста вестибулярного отдела гортани справа. В динамике через 2 мес при ФЛС объемное образование в гортани прежних размеров. Пациентка консультирована 12.07.17 в Иркутском областном онкологическом диспансере: больше данных за солидную опухоль, рекомендовано удаление опухолевидного образования на базе областной детской больницы, дальнейшая тактика ведения пациента после гистологического исследования опухоли. 24.07.17 в ИГОДКБ была выполнена операция под наркозом с превентивным наложением нижней трахеостомы для проведения вентиляции дыхательных путей (трубка №5): при подвесной ларингоскопии гортанными ножницами под контролем операционного микроскопа OPMI Sensera удалено образование гортани, занимающее всю правую вестибулярную складку и желудочек гортани до щитовидного хряща латерально и до голосовой складки дистально. Во время операции кровотечения не было, образование при его удалении очень плотное, ткань красного цвета, размеры макропрепарата 1,5×1,5×1 см.

Данные гистологического исследования: микроскопическая картина соответствует амилоидозу гортани **(рис. 3, на цв. вклейке)**, при просмотре в поляризованном свете определяется яблочно-зеленое свечение.

На 4-е сутки пациентка была деканюлирована, трахеостома ушита косметическими швами. Для исключения системного поражения проведены: биохимический анализ крови, анализ мочи, рентгенограмма грудной клетки, УЗИ внутренних органов — очаговых образований в почках, печени, сердце, легких не обнаружено, анализы в норме. 04.08.17 пациентка была выписана с диагнозом «амилоидоз вестибулярного отдела гортани справа». Контрольный осмотр через 1,5 и через 8 мес после операции: жалоб нет, голос звучный, громкий, дыхание свободное. В гортани слизистая оболочка розовая, голосовые складки серые, подвижны, асимметрии не определяется.

Интерес данного случая заключается в диагностике редкого заболевания — амилоидоз гортани у девочки-подростка с первоначальным подозрением на опухоль гортани. В распознавании размеров процесса в гортани наряду с фиброларингоскопией были востребованы и эффективны МСКТ и УЗИ гортани.

Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.
The authors declare no conflicts of interest.

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

1. Свистушкин В.М., Мустафаев Д.М. Амилоидоз респираторного тракта. *Русский медицинский журнал*. 2014;26:1940-1942. Ссылка активна на 26.06.18.
Svistushkin VM, Mustafaev DM. Amyloidosis of the respiratory tract. *Russkij Medicinskij Zhurnal*. 2014;26:1940-1942. Accessed June 6, 2018. (In Russ.). https://www.rmj.ru/articles/otorinolaringologiya/Amiloidoz_respiratornogo_trakta/#ixzz5G3uQ7ocv
2. Национальные клинические рекомендации «Диагностика и лечение АА- и АL-амилоидоза». 2014. Ссылка активна на 26.06.18.
Nacional'nye klinicheskie rekomendacii «Diagnostika i lechenie AA-i AL-amiloidoza». 2014. Accessed June 6, 2018. (In Russ.). http://nonr.ru/?page_id=3178
3. Phillips NM, Matthews E, Altmann C, Agnew J, Burns H. Laryngeal amyloidosis: diagnosis, pathophysiology and management. *The Journal of Laryngology & Otology*. 2017;131(S2):41-47. https://doi.org/10.1017/s0022215117000780
4. España Fuente L, Mella Pérez G, Laserna Cocina B, González González JL. Can videolaryngoscopy be a first option in a patient with laryngeal amyloidosis? *Revista Espanola de Anestesiologia y Reanimacion*. 2018;65(3):160-164. https://doi.org/10.1016/j.redare.2018.01.005
5. Heller H, Sohar E, Gafni J. Classification of amyloidosis with special regard to the genetic types. *Pathol Microbiol* (Basel). 1964;27:833-840. https://doi.org/10.1159/000161536
6. Pribitkin E, Friedman O, O'Hara B, Cunnane MF, Levi D, Rosen M, et al. Amyloidosis of the upper aerodigestive tract. *Laryngoscope*. 2003;113:2095-2101. https://doi.org/10.1097/00005537-200312000-00007
7. Singh R, Sen T, Pattari S. An unusual case of hoarseness of voice. *Respiratory Medicine Case Reports*. 2018;2;23:128-130. https://doi.org/10.1016/j.rmcr.2018.01.013
8. Rudy SF, Jeffery CC, Damrose EJ. Clinical characteristics of laryngeal versus nonlaryngeal amyloidosis. *Laryngoscope*. 2018;128(3):670-674. https://doi.org/10.1002/lary.26846
9. Caporrino Neto J, Alves NS, Gondra Lde A. Laryngeal amyloidosis presenting as false vocal fold bulging: clinical and therapeutic aspects. *Brazilian Journal of Otorhinolaryngology*. 2015;81(2):219-221. https://doi.org/10.1016/j.bjorl.2015.01.001
10. Wierzbicka M, Budzyński D, Piwowarczyk K, Bartochowska A, Marszałek A, Szyfter W. How to deal with laryngeal amyloidosis? Experience based on 16 cases. *Amyloid*. 2012;19(4):177-181. https://doi.org/10.3109/13506129.2012.723073
11. Chow LT, Chow W, Shum BS. Fatal massive upper respiratory tract haemorrhage: an unusual complication of localized amyloidosis of the larynx. *The Journal of Laryngology & Otology*. 1993;107:51-53. https://doi.org/10.1017/s0022215100122145
12. Mäkitie AA, Vala U, Kronlund H, Kääriäinen M, Pettersson T. Laryngeal amyloidosis as a cause of death. *Amyloid*. 2013;20(1):58. https://doi.org/10.3109/13506129.2013.763785
13. Hazenberg BP, van Rijswijk MH, Piers DA, Lub-de Hooge MN, Vellenga E, Haagsma EB, et al. Diagnostic performance of 123I-labeled serum amyloid P component scintigraphy in patients with amyloidosis. *The American Journal of Medicine*. 2006;119:15-24. https://doi.org/10.1016/j.amjmed.2005.08.043
14. Nagasaka T, Lai R, Kuno K, Nakashima T, Nakashima N. Localized amyloidosis and extramedullary plasmacytoma involving the larynx of a child. *Human Pathology*. 2001;32:132-134. https://doi.org/10.1053/hupa.2001.20896
15. Hurbis CG, Holinger LD. Laryngeal amyloidosis in a child. *Annals of Otology, Rhinology & Laryngology*. 1990;99:105-107. https://doi.org/10.1177/000348949009900204
16. Mitrani M, Biller HF. Laryngeal amyloidosis. *Laryngoscope*. 1985;95:1346-1347. https://doi.org/10.1288/00005537-198511000-00010
17. O'Halloran LR, Lusk RP. Amyloidosis of the larynx in a child. *Annals of Otology, Rhinology & Laryngology*. 1994;103:590-594. https://doi.org/10.1177/000348949410300802
18. Clevens RA, Wiatrak BJ, Myers MW. Multifocal amyloidosis of the pediatric airway. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 1995;121:229-232. https://doi.org/10.1001/archotol.1995.01890020091017

Поступила 17.09.18
Received 17.09.18
Принята в печать 12.02.19
Accepted 12.02.19