



УДАЛЕНИЕ ГИГАНТСКИХ ПРЕСАКРАЛЬНЫХ НЕЙРОГЕННЫХ ОПУХОЛЕЙ С ПРИМЕНЕНИЕМ ИНДИВИДУАЛЬНЫХ 3D-МОДЕЛЕЙ: АНАЛИЗ СЕРИИ СЛУЧАЕВ И ОБЗОР ЛИТЕРАТУРЫ

Р.А. Коваленко¹, В.А. Кашин¹, В.Ю. Черebilло¹, В.В. Руденко², И.Н. Данилов¹, А.В. Чернов¹, Л.Б. Митрофанова¹

¹Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова, Санкт-Петербург, Россия

²Национальный медицинский исследовательский центр травматологии и ортопедии им. Р.Р. Вредена, Санкт-Петербург, Россия

Проанализированы особенности и принципы оперативного лечения гигантских нейрогенных опухолей пресакральной области на примере собственной серии случаев и обзора литературы. Представлены 3 клинических примера хирургического лечения пациентов с гигантскими пресакральными невриномами. Помимо стандартного предоперационного обследования, по данным КТ-ангиографии изготавливали трехмерные модели костей малого таза, опухоли и сосудов по технологии 3D-печати. В двух случаях производили удаление гигантских неврином L₅ корешка с пресакральным распространением из забрюшинного доступа, в одном случае — двухэтапное удаление пресакральной нейрофибромы из срединного лапаротомного и дорсального доступов. Гигантские пресакральные нейрогенные опухоли встречаются редко и не являются привычной патологией в практике спинальных хирургов. Оперативное лечение должно осуществляться мультидисциплинарной хирургической бригадой. Надо учитывать, что в раннем послеоперационном периоде характерно развитие жизнеугрожающих осложнений. Использование индивидуальных 3D-моделей является дополнительным полезным инструментом периоперационного планирования.

Ключевые слова: шваннома, нейрофиброма, забрюшинная опухоль, пресакральная опухоль, позвоночник, 3D-модель.

Для цитирования: Коваленко Р.А., Кашин В.А., Черebilло В.Ю., Руденко В.В., Данилов И.Н., Чернов А.В., Митрофанова Л.Б. Удаление гигантских пресакральных нейрогенных опухолей с применением индивидуальных 3D-моделей: анализ серии случаев и обзор литературы // Хирургия позвоночника. 2021. Т. 18. № 2. С. 73–82.

DOI: <http://dx.doi.org/10.14531/ss2021.2.73-82>.

REMOVAL OF GIANT PRESACRAL NEUROGENIC TUMORS WITH APPLICATION OF THE CUSTOMIZED 3D-PRINTED MODELS: CASE SERIES ANALYSIS AND LITERATURE REVIEW

R.A. Kovalenko¹, V.A. Kashin¹, V.Yu. Cherebillo¹, V.V. Rudenko², I.N. Danilov¹, A.V. Chernov¹, L.B. Mitrofanova¹

¹Almazov National Medical Research Centre, St. Petersburg, Russia

²Russian Scientific Research Institute of Traumatology and Orthopedics n.a. R.R. Vreden, St. Petersburg, Russia

The characteristics and principles of surgical treatment of giant presacral neurogenic tumors are analyzed on the example of authors' own series of cases and based on the literature review. Three clinical cases of surgical treatment of patients with giant presacral neuromas are presented. Besides routine preoperative clinical examination, 3D-printed models of pelvic bones, tumors and blood vessels were made based on CT-angiography data. In two cases, giant L₅ root neuromas with presacral extension were removed through retroperitoneal approach, and in one case, two-stage removal of the giant presacral neurofibroma through the median laparotomic and dorsal approaches was performed. Giant presacral neurogenic tumors are the rare pathology in the practice of spinal surgeons. Surgical treatment should be carried out by a multidisciplinary surgical team. It should be borne in mind that life-threatening complications are common in the early postoperative period. Application of customized 3D-printed models is an additional useful tool of perioperative planning.

Key Words: schwannoma, neurofibroma, retroperitoneal tumor, presacral tumor, spine, 3D model

Please cite this paper as: Kovalenko RA, Kashin VA, Cherebillo VYu, Rudenko VV, Danilov IN, Chernov AV, Mitrofanova LB. Removal of giant presacral neurogenic tumors with application of the customized 3D-printed models: case series analysis and literature review. *Hir. Pozvonoc.* 2021;18(2):73–82. In Russian. DOI: <http://dx.doi.org/10.14531/ss2021.2.73-82>.

Гигантские пресакральные нейрогенные опухоли встречаются редко, по различным данным [1–4], составляя 0,3–5,0 % опухолей оболочек нервов всех локали-

заций, около 7,0 % – спинальных, 0,4–15,0 % – забрюшинных образований, и являются причиной 1 из 40 000 госпитализаций. Гигантскими пресакральными

ми нейрогенными опухолями принято считать образования оболочки нерва размером в максимальном измерении более 5 см либо охватывающие 2 и более

позвоночных сегмента и имеющие распространение в пресакральную область более 2,5 см [5].

Научные публикации представлены преимущественно демонстрацией отдельных клинических случаев. Проведенный Pennington et al. [6] метаанализ случаев хирургического лечения доброкачественных гигантских пресакральных шванном выявил 123 опубликованных эпизода, удовлетворяющих вышеобозначенным критериям. Операции по поводу данных образований выполняют хирурги различного профиля (нейрохирурги, абдоминальные хирурги, урологи и др.) либо мультидисциплинарные бригады. Описаны различные хирургические подходы, включающие дорсальные, вентральные и комбинированные доступы, использование эндоскопии и робот-ассистенции [7–9].

С учетом частоты встречаемости патологии представляется актуальной публикация трех дополнительных клинических случаев. Впервые при удалении аналогичных образований для предоперационного планирования применяли индивидуальные 3D-модели опухоли с прилежащими костными структурами и кровеносными сосудами.

Цель исследования – представление клинических особенностей и принципов оперативного лечения гигантских нейрогенных опухолей пресакральной области на примере

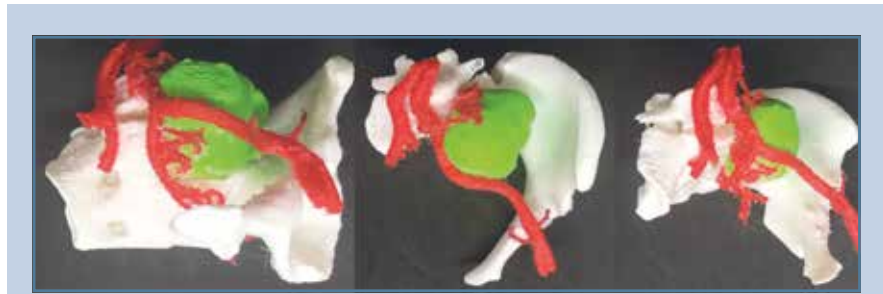


Рис. 1

3D-модель гигантской невриномы L₅ корешка слева, с распространением в пресакральную зону (клинический случай 1): представлены L₅–S₂ позвонки, левая подвздошная кость, подвздошные артерии и питающие сосуды опухоли

собственной серии случаев и обзора литературы.

Материал и методы

Представлены 3 клинических случая хирургического лечения пациентов с гигантскими пресакральными нейрогенными опухолями. Помимо стандартного предоперационного обследования, по данным КТ-ангиографии с использованием технологии 3D-печати изготавливали трехмерные модели костей малого таза, опухоли и сосудов (рис. 1–3). Сегментацию данных проводили в программе MIMICS Materialise (Бельгия). Первичную модель подвергали обработке в графическом 3D-редакторе Blender 2.80. Индивидуальные модели печатали по методу послойного наплавления

(FDM) на 4-экструдерном принтере Z-Bolt X с технологией смены печатных головок Tool Change. Программный код печати для каждого экструдера задавали в слайсере Cura 4.6.0. В качестве материала использовали филамент диаметром 1,75 мм, для печати костных структур и опухоли применяли твердый пластик (PLA), для сосудов – гибкий материал (Flex).

Модели использовали как в предоперационном планировании, так и для определения хирургической тактики во время операции. Все оперативные вмешательства выполняла мультидисциплинарная бригада хирургов.

Результаты

Клинический случай 1. Пациентка Г., 52 лет, поступила с жалобами на пери-

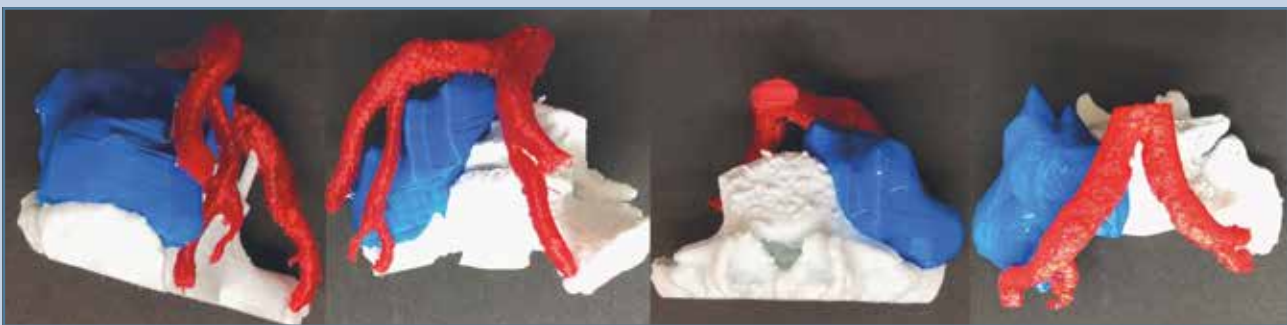


Рис. 2

3D-модель шванномы правого L₅ корешка (клинический случай 2): представлена опухоль, L₅–S₁ позвонки, подвздошные артерии

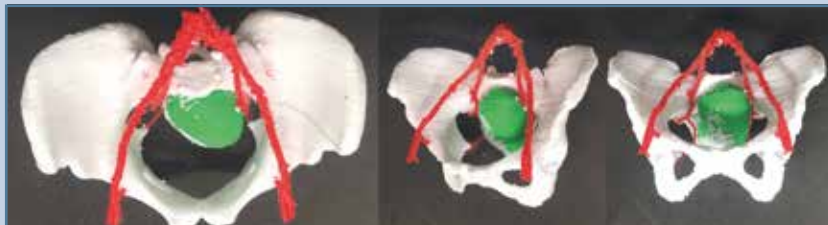


Рис. 3

3D-модель гигантской нейрофибромы на уровне S_1 – S_5 с костями таза и подвздошными артериями (случай 3)

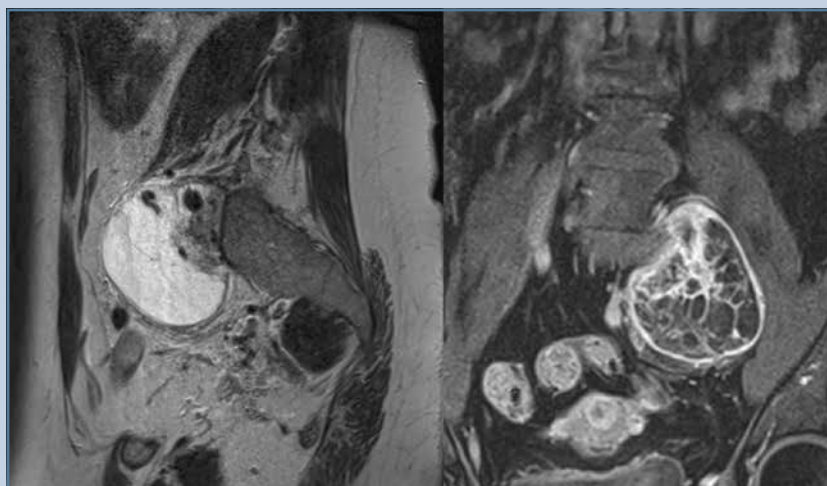


Рис. 4

МРТ пациентки Г., 52 лет, до операции

одическую боль в пояснице с иррадиацией в левую ногу, слабость в левой ноге. Симптомы беспокоили несколько лет. За 5 мес. до операции при УЗИ органов малого таза в связи с почечной коликой было выявлено объемное образование в пресакральной области. По данным МРТ, это кистозно-солидная опухоль до 7 см в диаметре на уровне L_5 – S_2 слева от позвоночного столба, с распространением в левое фораминальное отверстие на уровне L_5 – S_1 (рис. 4). При неврологическом обследовании определялась гипестезия в дерматоме L_5 слева, парез тыльного сгибания левой стопы – 4 балла. С учетом латерализованного расположения образования на уровне пояснично-крестцового перехода приняли решение о выпол-

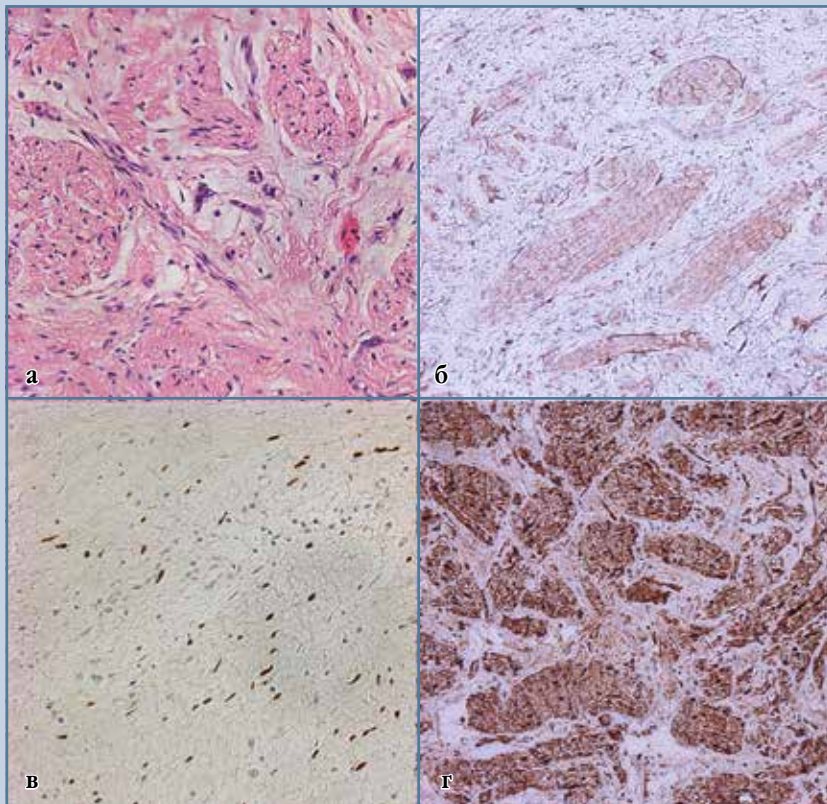
нении левостороннего забрюшинного доступа по Робу. После мобилизации подвздошных сосудов и *m. iliopsoas* вскрыли капсулу опухоли, опорожнили кисту с содержимым – около 5 мл прозрачной жидкости. Интракапсулярное удаление сопровождалось интенсивным артериальным и венозным кровотечением из сосудов опухоли, что потребовало на различных этапах операции наложения зажимов на подвздошные артерии. Гемостаз осуществили моно- и биполярной коагуляцией, тампонадой с гемостатической губкой, прошиванием сосудов. Суммарная кровопотеря составила около 3500 мл, частично компенсирована реинфузией крови через cell saver и переливанием донорской крови. Опухоль мягкой консистенции, боль-

шая часть удалена с помощью ультразвукового дезинтегратора.

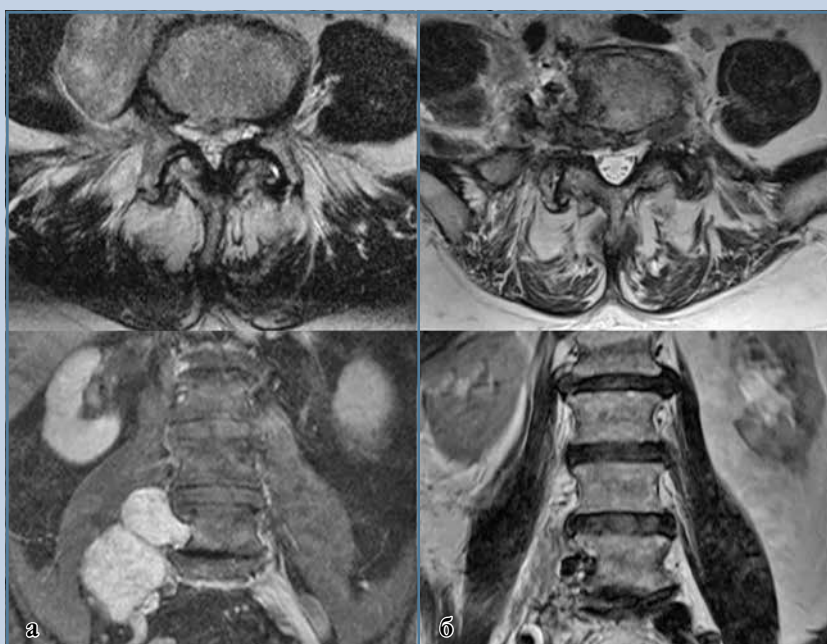
На 3-и сут после операции у пациентки развился острый отек левой ноги, по данным доплерографии был диагностирован тромбоз глубоких вен левой нижней конечности и вен таза без признаков флотации. Назначена антикоагулянтная терапия, компрессионный трикотаж. Пациентку выписали на 14-е сут после операции. Неврологически отмечено прогрессирование пареза левой стопы (тыльное сгибание) до 2–3 баллов. Гистологическое заключение: плексиформная нейрофиброма (рис. 5).

Клинический случай 2. Пациентка С., 62 лет, поступила с жалобами на боль в пояснице с иррадиацией по задней поверхности ног, больше справа, слабость в правой ноге. Симптомы беспокоили около полугода. По результатам МРТ диагностировано объемное образование правого L_5 корешка, распространяющееся из фораминального отверстия в забрюшинное пространство до уровня S_2 (рис. 6). По КТ выявлены очаги деструкции в телах L_5 и S_1 . Неврологический дефицит представлен нижним монопарезом в зоне иннервации L_5 справа до четырех баллов.

Оперативный доступ осуществлен по Робу забрюшинно, справа, как и в предыдущем случае. В области бифуркации аорты и дистальнее под правой общей подвздошной артерией и веной и в области бифуркации подвздошных сосудов визуализирована опухоль, частично прикрытая *m. iliopsoas*. Опухоль представляла собой конгломерат из нескольких узлов плотной консистенции, спаянный с переднебоковой поверхностью L_5 и S_1 позвонков и не поддающийся деструкции ультразвуковым дезинтегратором. Удаление осуществляли за счет фрагментации электроножом. Для мобилизации сосудов и радикального удаления опухоли выполнили перевязку и пересечение *v. iliaca interna* у места впадения в *v. iliaca communis*. В процессе выделения опухоли обнаружили выходящий корешок, при стимуляции был

**Рис. 5**

Плексиформная нейрофиброма: **а** – опухоль представлена вытянутыми клетками и коллагеновыми волокнами с нервными волокнами классического строения, окраска гематоксилином и эозином; опухоль экспрессирует: **б** – GLUT1; **в** – SOX10; **г** – S100; ув. 100



получен моторный ответ с мышц голени. С учетом невозможности выделения волокон корешок пересекли. Кровопотеря – 400 мл.

Пациентка вертикализована в 1-е сут, значимого нарастания неврологического дефицита не наблюдали. Послеоперационный период протекал без осложнений, выписка на 7-е сут. По данным контрольной МРТ: удаление тотальное. Гистологическое заключение: шваннома.

Клинический случай 3. Пациентка С., 30 лет, поступила с жалобами на периодические боли по задненаружной поверхности левой ноги от крестца до стопы, мышечную слабость в ногах, онемение пальцев левой стопы, наружной поверхности верхней трети бедра и ягодиц слева. Неврологически – парез мышц левой ноги в 4 балла, гипестезия в указанной зоне. Одиннадцать лет назад по данным МРТ диагностировано объемное образование малого таза (рис. 7). Через 4 года выполнено родоразрешение путем кесарева сечения, в ходе которого предполагалось удаление опухоли, что не было выполнено из-за технических трудностей. Со временем пациентка стала отмечать уменьшение интенсивности боли в ноге с прогрессированием онемения и слабости. По контрольным МРТ отмечали увеличение опухоли в размерах с распространением в малый таз и в позвоночный канал на уровне S₂–S₄. С учетом значительного интраканального объема опухоли и крупного узла в пресакральной области было принято решение о двухэтапном удалении из вентрального и дорсального доступов.

Вентральный доступ выполняли путем средненижнесрединной лапаротомии в положении пациентки лежа на спине с разведенными

Рис. 6

МРТ пациентки С., 62 лет, до **(а)** и после **(б)** операции

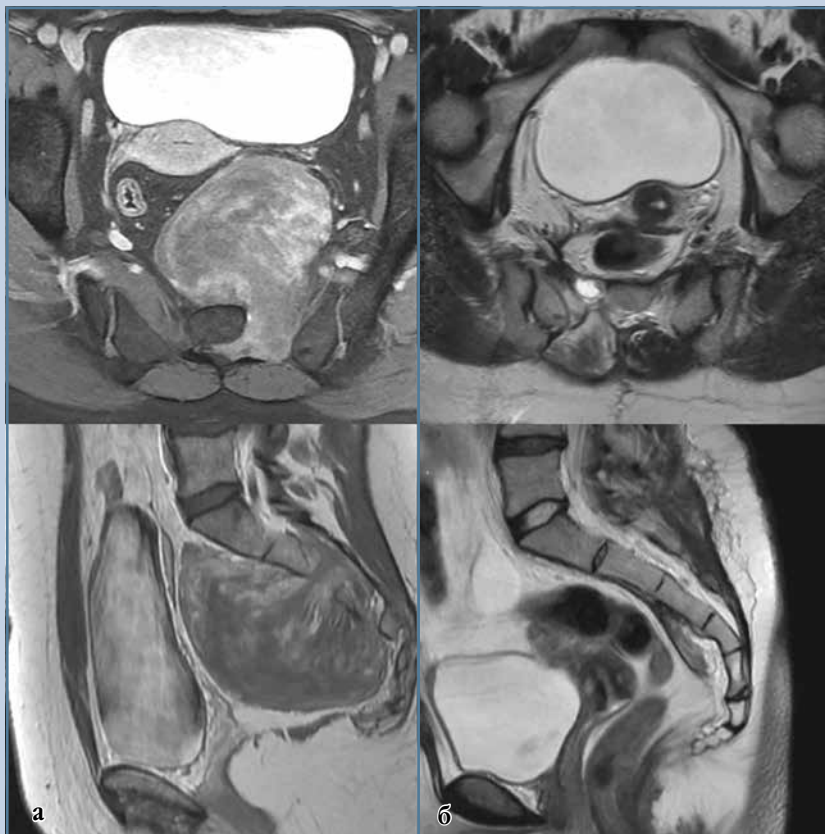


Рис. 7

МРТ пациентки С., 30 лет, до (а) и после (б) операции

ми ногами. Выполнена мобилизация петель тонкой кишки с последующим выходом в забрюшинное пространство. Визуализированы оба мочеточника, яичники, маточные трубы, мобилизована прямая кишка по мезоректальному слою. Удаление en-block было невозможным вследствие плотной фиксации опухоли к крестцу. Как и в случае 2, опухоль плотной консистенции, не поддавалась деструкции ультразвуковым дезинтегратором, удаление путем фрагментации электроножом. В процессе удаления левого фланка (из-за интенсивного венозного кровотечения из вены опухоли) – притока *v. iliaca interna*, попытки гемостаза электрокоагуляцией безуспешны, визуализировали дефект *v. iliaca interna*, ушили проленом 3/0, сосуд в опухоли прошили, скоагулировали,

пересекли. Мононожом опухоль отделили от крестца, под нейрофизиологическим контролем пересекли S_2-S_3 корешки слева. В процессе мобилизации нижнеправого сегмента произошло интенсивное венозное кровотечение из сосуда опухоли. Выполнили тампонаду surgicell, коллагеновой губкой. Дренаж в пресакральное пространство. Кровопотеря – 2000 мл.

На 2-е сут после операции при вертикализации пациентки по дренажу одновременно выделилось около 1500 мл свежей крови, в связи с чем выполнили экстренную ревизионную релапаротомию. В брюшной полости вдоль дренажа свертки крови. Ревизия брюшной полости – источников кровотечения нет. Сняли швы с забрюшинного пространства. В малом тазу обнаружили около 50 мл крови в свертках. Выполнили ревизию зоны

операции – источников кровотечения не обнаружили. При смещении тупфером внутренней запирающей мышцы открылось артериальное кровотечение из сосуда мышцы, остановили прошиванием. К зоне кровотечения уложили гемостатическую губку. Кровопотеря – 200 мл.

Дальнейший послеоперационный период протекал без осложнений. На 2-е сут после ревизии пациентку вертикализировали. Рана зажила первичным натяжением. Неврологический статус без отрицательной динамики. Продолжительность пребывания в отделении – 34 дня. Гистологическое заключение: плексиформная нейрофиброма (рис. 8).

Дорсальный этап выполнили через 3 мес. в положении пациентки лежа на животе. Разрез по средней линии в проекции S_1-S_4 . Вскрыли крестцовый канал. Диссекция нейрофибромы от невралных структур, опухоль плотно спаяна с передней стенкой крестцового канала. Электроножом произвели удаление образования. Гемостаз. Кровопотеря – 100 мл. Пациентку вертикализировали в 1-е сут, послеоперационный период без осложнений.

По контрольным МРТ после второго этапа хирургического лечения пресакрально определяется остаточный фрагмент опухоли на уровне крестцовых отверстий S_3-S_4 размером до 1 см. Через 1 год после операции у пациентки сохраняется анестезия в ягодичной области, стопе и нижней трети голени, парез мышц – до 4 баллов. Радикулярная боль регрессировала, анальгетики не принимает, ведет полноценный образ жизни.

Обсуждение

Опухоли оболочки нерва – подкласс мягкотканых образований, представленный как доброкачественными, так и злокачественными вариантами. Невралные опухоли пояснично-крестцовой локализации длительное время остаются малосимптомными и часто диагностируются как случайные находки из-за преимущественно вентрального роста и большого объема резерв-

ного забрюшинного пространства [3]. Большинство опухолей оболочек нервов данной локализации – шванномы. Изолированные нейрофибромы встречаются значительно реже [10]. В подавляющем большинстве случаев опухоли доброкачественные и не склонны к инвазии прилежащих структур [11]. Злокачественные варианты представлены малигнизированными шванномами и нейрофибросаркомами [12].

Неврологическая картина чаще всего представлена болью в пояснице и умеренно выраженными радикулярными симптомами, развивающимися при достаточно крупных размерах опухоли, – гипестезией, парезом и болью в зоне иннервации пораженных корешков [13, 14]. Медленный

рост обуславливает постепенное смещение органов таза, вызывая нарушение их функции и связанные с этим симптомы при достижении достаточно крупных размеров: дискомфорт и боль в животе [8], запоры, [15], тромбоз глубоких вен [3], дизурические расстройства.

МРТ – ключевой метод диагностики. Характерными признаками являются четкая граница, овоидная или сферическая форма, рост из фораминального отверстия [12]. Достоверно отличить доброкачественный вариант опухоли от злокачественного, как и гистологический тип по данным рентгенологического обследования, как правило, не удается [16]. Большинство доброкачественных нейрогенных опухолей представлены гомогенной

массой на МРТ, около 6 % демонстрируют кистозные изменения. Злокачественные опухоли имеют гетерогенные характеристики и содержат кисты в 75 % случаев [17]. В то же время дегенеративные изменения, известные в гистологической литературе как признаки «старой» шванномы (ancient schwannoma), включают формирование кист, признаки кровоизлияний, кальцинаты и фиброз, что не характерно для нейрофибром [16]. Также в большинстве случаев у шванном прослеживается капсула в виде тонкого гиподенсного обода по периферии образования [16]. Описаны случаи ошибочной интерпретации опухоли как абсцеса *m. iliopsoas*, кисты яичника [18, 19], аневризматической костной кисты [20] и тератомы [21]. КТ-ангиография является обязательным методом диагностики перед операцией для определения особенностей кровоснабжения опухоли и ее взаимоотношения с магистральными сосудами. На КТ опухоли выглядят как солидные образования с четким контуром, могут быть визуализированы расширенные крестцовые отверстия, зоны деструкции кости, кисты и кальцинаты [22].

Макроскопически шванномы выглядят хорошо отграниченными узлами с четко выраженной капсулой. На разрезе они обычно серо-желтые или содержат желтые вкрапления. Могут иметь участки ангиоматоза и кисты. Микроскопически раньше учитывали тип Антони А с тельцами Верокаи (палисадными структурами из вытянутых клеток) и тип Антони В ретикулярного строения с рыхло расположенными клетками. В настоящее время выделяют целлюлярные, плексиформные и меланотические шванномы, отдельно сообщается о «старой» шванноме (ancient) с выраженным клеточным полиморфизмом, внутриядерными и цитоплазматическими включениями, которую относят к доброкачественным. Клеточные шванномы состоят из гиперцеллюлярной ткани типа Антони А, но без телец Верокаи. Меланотические шванномы построены из шванновских клеток, но опухоль содержит большое

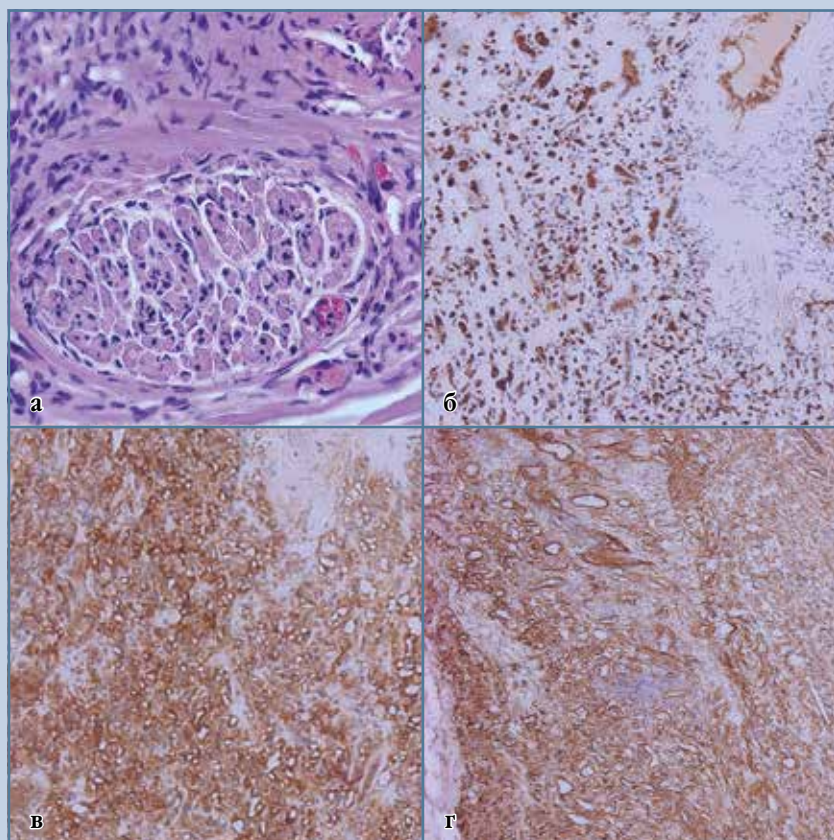


Рис. 8

Плексиформная нейрофиброма: **а** – с нормальным нервным волокном, окраска гематоксилином и эозином; опухоль экспрессирует: **б** – CD34; **в** – S100; **г** – Collagen IV; ув. 100

количество меланина, меланосомы и реактивна к меланоцитарным маркерам. Шванномы экспрессируют S100, SOX10, LEU7, calretinin.

Нейрофибромы состоят из шванновских клеток и фибробластов, продуцирующих коллаген. Макроскопически они представлены хорошо очерченными узлами. Выделяют плексиформную нейрофибром, растущую из нервных сплетений, и атипичную, характеризующуюся высокой клеточностью, мономорфной цитологией, фигурами митоза и/или пучковым ростом с атипией клеток. Локализованная спорадическая нейрофиброма белесовато-серого цвета обычно имеет капсулу, в отличие от шванномы, более мягкой консистенции, особенно на периферии, где она может напоминать миксому, то есть иметь вид студня. Нейрофиброма экспрессирует S100, SOX10, GLUT1, стромальные клетки могут окрашиваться CD34 [23–25].

Необходимость выполнения предоперационной биопсии остается спорным моментом: ряд авторов сходится во мнении, что количество материала, полученного при аспирационной и трепан-пункции, является недостаточным для точной диагностики. Участки клеточного полиморфизма в определенных локусах опухоли могут быть ошибочно расценены как признаки малигнизации, а выполнение пункции может сопровождаться развитием осложнений [3, 8]. У ряда пациентов выполнялось интраоперационное исследование замороженных препаратов [11, 26]. В наших случаях у всех пациенток были типичные МР-признаки опухолей корешков. Установление степени злокачественности, на наш взгляд, не оказывает принципиального влияния на объем операции: и в случае доброкачественных, и в случае злокачественных опухолей более благоприятный прогноз связан со степенью радикальности резекции, в связи с чем нужно стремиться к тотальному удалению [7].

Планирование оперативного доступа, как правило, осуществляется с учетом локализации образования. Опи-

саны случаи лапароскопического и робот-ассистированного удаления [9, 27, 28], но в большинстве случаев выполняются классические открытые доступы. При латерализованном расположении приоритетным является боковой забрюшинный доступ, возможны варианты в виде пара-ректального линейного или косо-го поперечного разреза. При срединном пресакральном расположении – нижнесрединная лапаротомия [29]. Доступ должен обеспечивать не только полную визуализацию опухоли, но и возможность мобилизации крупных сосудов и органов забрюшинного пространства. При наличии значимого интраканального компонента удаление более безопасно выполнять в несколько отдельных этапов. Klíto et al. [10] предложили разделять сакральные невриномы на 4 типа: тип 1 – с локализацией опухоли в крестцовом канале; тип 2 – с выходом опухоли через крестцовое отверстие в забрюшинное пространство; тип 3 – с первичной локализацией в крестце, но с распространением в вентральном и дорсальном направлениях в смежные пространства; тип 4 – с исключительно пресакральной локализацией. При локализации опухоли дистальнее S₁ позвонка для опухолей типа 1 рекомендован передний доступ, типов 2 и 4 – изолированный передний, типа 3 – комбинированный передний и задний. Ряд авторов описывает успешные случаи радикального удаления пресакральных шванном из изолированного дорсального доступа [26] или минимально-инвазивного паракокцигеального. Среди преимуществ обозначается меньшая вероятность повреждения крупных сосудов и органов забрюшинного пространства в ходе интракапсулярного удаления, как и отсутствие отдаленных негативных последствий вентрального доступа (например, эректильной дисфункции). На наш взгляд, такой подход может быть сложно реализуем при плотной консистенции опухоли, отсутствии четкой границы между капсулой и собственно опухолевой массой

и в случаях обильно кровоснабжаемых опухолей. Кроме того, необходимо учитывать, что при развитии ретроперитонеального кровотечения, оно может быть нераспознанным определенное количество времени и потребовать выполнения экстренной ревизии из вентрального доступа, что чревато острой массивной кровопотерей. Несмотря на описанные случаи удаления гигантских пресакральных шванном из изолированного дорсального доступа, вентральный подход, на наш взгляд, является приоритетным.

В ряде случаев при обширных зонах костной деструкции, вовлечении крестцово-подвздошного сочленения и межпозвоночных суставов выполняли пояснично-тазовую фиксацию металлоконструкцией [7, 13, 30] или введение костного цемента [31].

Рекомендуется выполнение операции мультидисциплинарной бригадой [7]. В представленных нами случаях при латеральных доступах операцию выполняли совместно с сосудистым хирургом, при срединном доступе – с абдоминальным хирургом. Техническое оснащение, помимо нейрохирургических инструментов, должно включать сосудистый набор, зеркала и ранорасширители для широких вентральных доступов, гемостатические материалы, налобные осветители. Планирование операции должно осуществляться с учетом возможной массивной кровопотери, с необходимым запасом донорской крови и аппаратом cell-saver. Wei et al. [7] в серии 48 случаев сакральных невриноом описывают использование временной баллонной окклюзии аорты в 24 случаях, средняя кровопотеря составила тем не менее 1600 мл (500–5000 мл), один пациент умер от ДВС-синдрома на фоне геморрагического шока. Проведенный метаанализ указывает, что средний объем кровопотери – около 2000 мл [6]. Возможной опцией снижения кровопотери является предоперационная эмболизация сосудов опухоли [3, 32]. Необходимо учитывать, что структура опухоли может существенно отличаться по плотности и кровоснабжению. В двух описанных случаях опу-

холи были плотными и не поддавались деструкции ультразвуковым дезинтегратором, удаление проводили электроножом и ножницами, в одном случае опухоль была мягкой, кистозной, но обильно кровоснабжаемой.

По нашему мнению, использование индивидуальной 3D-модели является полезным дополнительным инструментом периоперационного планирования и улучшает понимание топографии опухоли и прилежащих структур в ходе оперативного вмешательства. В то же время мы не рассматриваем данную методику как значимо влияющую на хирургическую тактику. Основным недостатком является сложность сегментации венозного русла по причине неравномерного и слабого контрастирования при выполнении КТ-ангиографии. Ранее сообщалось о преимуществах моделей при удалении опухолей позвоночного столба [33, 34], тогда как данных об использовании 3D-моделей в хирургии забрюшинных нейрогенных опухолей обнаружено не было. С учетом крайне низкой частоты встречаемости подобных образований и разнообразия патоморфологических характеристик (размера, локализации, кровоснабжаемости и т.д.) оценить объективную пользу от использования 3D-печати по конкретным параметрам в сравнительном исследовании не представляется возможным.

Alderete et al. [11] сообщают о 45 % частоте встречаемости таких осложнений, как гематома, тромбоз глубоких вен и инфекция области хирургического вмешательства при удалении нейрогенных опухолей пресакральной зоны. В нашей практике аналогичные осложнения развились у двух пациенток в виде повторного кровотечения, потребовавшего экстренной ревизии, и тромбоза глубоких вен. Для своевременного выявления кровотечения рекомендуем сохранять дренаж диаметром не менее 1 см в забрюшинном про-

странстве в течение первых суток вертикализации. Наиболее частым неврологическим осложнением является усугубление пареза и чувствительных расстройств [11]. В то же время при удалении доброкачественных невралных опухолей, развитие значимого неврологического дефицита не характерно, что авторы объясняют интраоперационной техникой с сохранением возможных функционально-значимых волокон. В наших случаях, даже при обнаружении входящих в опухоль корешков, отделить их волокна от капсулы не представлялось возможным. Несмотря на это, мы не наблюдали характерной картины полного поражения задействованных корешков после операции, все пациентки были вертикализированы на 1–2-е сут и ходили самостоятельно, без вспомогательных средств. Гипотетически это можно объяснить длительным ростом опухоли с постепенной утратой функций вовлеченных корешков и их компенсацией за счет интактных невралных образований. При локализации опухоли в пресакральной зоне нельзя допускать двустороннего пересечения S₂ корешка во избежание дисфункции органов таза. В целом, в отдаленном периоде после удаления доброкачественных забрюшинных нейрогенных опухолей пациенты не отмечают значительного снижения качества жизни [11]. По данным метаанализа Pennington et al. [6], при удалении доброкачественных шванном осложнения развились в 25,6 % случаев, наиболее частыми были слабость и снижение чувствительности в ногах, задержка мочеиспускания и эректильная дисфункция у мужчин [6]. Частота осложнений коррелировала с размером опухоли и была больше при открытом вентральном доступе, по сравнению с эндоскопическим, робот-ассистированным и изолированным доступами, однако группы могут быть неодно-

родными по размеру и локализации опухоли.

Вероятность рецидива опухоли, прежде всего, определяется гистологической картиной. Злокачественные опухоли корешков, как правило, склонны к продолженному росту, даже после тотального удаления и комбинированного лечения [30]. Основным предиктором рецидива при доброкачественных опухолях, не ассоциированных с нейрофиброматозом, является степень радикальности удаления. При частичном удалении доброкачественных шванном 10-летний безрецидивный период наблюдали в 40,7 % случаев, при удалении en-block – в 100,0 %, при gross total resection – в 95,0 % (различия между последними двумя показателями статистически не значимы) [6]. В данном случае также возникают вопросы касательно сопоставимости выборки, поскольку при опухолях типа 1–3 по Klimo удаление en-block подразумевает сакрэктомия, что не является оправданным при доброкачественных опухолях оболочек позвоночных нервов.

Заключение

Гигантские пресакральные нейрогенные опухоли встречаются редко и не являются привычной патологией в практике спинальных хирургов. Оперативное лечение должно осуществляться мультидисциплинарной хирургической бригадой. В раннем послеоперационном периоде характерно развитие жизнеугрожающих осложнений. Использование индивидуальных 3D-моделей может рассматриваться как дополнительный полезный инструмент периоперационного планирования.

Исследование не имело спонсорской поддержки. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Литература/References

- Buchs N, Taylor S, Roche B.** The posterior approach for low retrorectal tumors in adults. *Int J Colorectal Dis.* 2007;22:381–385. DOI: 10.1007/s00384-006-0183-9.
- Khan UA, Ismayl G, Malik I.** Giant sacral schwannoma treated with a 360 approach: a rare case and systematic review of the literature. *World Neurosurg.* 2018;115:65–72. DOI: 10.1016/j.wneu.2018.03.203.
- Theodosopoulos T, Stafyla VK, Tsiantoula P, Yiallourou A, Marinis A, Kondipafitis A, Chatziioannou A, Boviatsis E, Voros D.** Special problems encountering surgical management of large retroperitoneal schwannomas. *World J Surg Oncol.* 2008;6:107. DOI: 10.1186/1477-7819-6-107.
- Jao SW, Beart RW Jr, Spencer RJ, Reiman HM, Ilstrup DM.** Retrorectal tumors. Mayo Clinic experience, 1960–1979. *Dis Colon Rectum.* 1985;28:644–652. DOI: 10.1007/BF02553440.
- Sridhar K, Ramamurthi R, Vasudevan MC, Ramamurthi B.** Giant invasive spinal schwannomas: definition and surgical management. *J Neurosurg.* 2001;94 (2 Suppl):210–215. DOI: 10.3171/spi.2001.94.2.0210.
- Pennington Z, Westbrook EM, Ahmed AK, Cottrill E, Lubelski D, Goodwin ML, Sciubba DM.** Surgical management of giant presacral schwannoma: systematic review of published cases and meta-analysis. *J Neurosurg Spine.* 2019:1–12. DOI: 10.3171/2019.4.SPINE19240.
- Wei G, Xiaodong T, Yi Y, Ji T.** Strategy of surgical treatment of sacral neurogenic tumors. *Spine.* 2009;34:2587–2592. DOI: 10.1097/BRS.0b013e3181bd4a2b.
- Li Q, Gao C, Juzi JT, Hao X.** Analysis of 82 cases of retroperitoneal schwannoma. *ANZ J Surg.* 2007;77:237–240. DOI: 10.1111/j.1445-2197.2007.04025.x.
- Jun C, Sukumaran M, Wolinsky JP.** Robot-assisted resection of pre-sacral schwannoma. *Neurosurg Focus.* 2018;45(VideoSuppl 1):V1. DOI: 10.3171/2018.7.FocusVid.1892.
- Klimo P Jr, Rao G, Schmidt RH, Schmidt MH.** Nerve sheath tumors involving the sacrum. Case report and classification scheme. *Neurosurg Focus.* 2003;15:E12. DOI: 10.3171/foc.2003.15.2.12.
- Alderete J, Novais EN, Dozois EJ, Rose PS, Sim FF.** Morbidity and functional status of patients with pelvic neurogenic tumors after wide excision. *Clin Orthop Relat Res.* 2010;468:2948–2953. DOI: 10.1007/s11999-010-1478-2.
- Kim DH, Murovic JA, Tiel RL, Moes G, Kline DG.** A series of 397 peripheral neural sheath tumors: 30-year experience at Louisiana State University Health Sciences Center. *J Neurosurg.* 2005;102:246–255. DOI: 10.3171/jns.2005.102.2.0246.
- Pongsthorh C, Ozawa H, Aizawa T, Kusakabe T, Nakamura T, Itoi E.** Giant sacral schwannoma: a report of six cases. *Ups J Med Sci.* 2010;115:146–152. DOI: 10.3109/03009730903359674.
- Alfieri A, Campello M, Broger M, Vitale M, Schwarz A.** Low-back pain as the presenting sign in a patient with a giant, sacral cellular schwannoma: 10-year follow-up. *J Neurosurg Spine.* 2011;14:167–171. DOI: 10.3171/2010.10.SPINE1015.
- Samarakoon L, Weerasekera A, Sanjeeva R, Kollure S.** Giant presacral schwannoma presenting with constipation: a case report. *J Med Case Rep.* 2012;6:285. DOI: 10.1186/1752-1947-6-285.
- Popuri R, Davies AM.** MR imaging features of giant pre-sacral schwannomas: a report of four cases. *Eur Radiol.* 2002;12:2365–2369. DOI: 10.1007/s00330-001-1234-9.
- Ogose A, Hotta T, Sato S, Takano R, Higuchi T.** Presacral schwannoma with purely cystic form. *Spine.* 2001;26:1817–1819. DOI: 10.1097/00007632-200108150-00020.
- Kishi Y, Kajiwara S, Seta S, Kawachi N, Suzuki T, Sasaki K.** Retroperitoneal schwannoma misdiagnosed as a psoas abscess: report of a case. *Surg Today.* 2002;32:849–852. DOI: 10.1007/s005950200166.
- Ibraheem M, Ikomi A, Khan F.** A pelvic retroperitoneal schwannoma mimicking an ovarian dermoid cyst in pregnancy. *J Obstet Gynaecol.* 2005;25:620–621. DOI: 10.1080/01443610500243752.
- Cho DY, Hur JW, Shim JH, Kim JS.** Cystic giant sacral schwannoma mimicking aneurysmal bone cyst: a case report and review of literatures. *J Korean Neurosurg Soc.* 2013;54:350–354. DOI: 10.3340/jkns.2013.54.4.350.
- Zou F, Dai M, Zhang B, Nie T.** Misdiagnosis of a giant intrapelvic schwannoma: A case report. *Oncol Lett.* 2013;6:1646–1648. DOI: 10.3892/ol.2013.1634.
- Huang M, Qian H, Wang J, Zhao Q, Jiang T.** Giant presacral schwannoma in man: report of a case with emphasis on imaging findings. *World Neurosurg.* 2020;133:14–16. DOI: 10.1016/j.wneu.2019.09.074.
- Chikkannaiah P, Boovalli MM, Nathiyal V, Venkataramappa S.** Morphological spectrum of peripheral nerve sheath tumors: An insight into World Health Organization 2013 classification. *J Neurosci Rural Pract.* 2016;7:346–354. DOI: 10.4103/0976-3147.182768.
- De Luca-Johnson J, Kalof AN.** Peripheral nerve sheath tumors: an update and review of diagnostic challenges. *Diagn Histopathol.* 2016;22:447–457. DOI: 10.1016/j.mpdhp.2016.10.008.
- Gupta A, Dwivedi T.** A simplified overview of World Health Organization Classification update of central nervous system tumors 2016. *J Neurosci Rural Pract.* 2017;8: 629–641. DOI: 10.4103/jnrp.jnrp_168_17.
- Lee BH, Hyun SJ, Park JH, Kim KJ.** Single stage posterior approach for total resection of presacral giant schwannoma: a technical case report. *Korean J Spine.* 2017;14:89–92. DOI: 10.14245/kjs.2017.14.3.89.
- Jatal S, Pai VD, Rakhi B, Saklani AP.** Presacral schwannoma: laparoscopic resection, a viable option. *Ann Transl Med.* 2016;4:176. DOI: 10.21037/atm.2016.04.07.
- Chopra S, Dharmaraja A, Satkunasivam R, Gill IS.** Robot-assisted laparoscopic resection of a pelvic schwannoma. *Urol Case Rep.* 2017;11:63–65. DOI: 10.1016/j.eurc.2016.11.027.
- Acciarri N, Staffa G, Poppi M.** Giant sacral schwannoma: removal by an anterior, transabdominal approach. *Br J Neurosurg.* 1996;10:489–492. DOI: 10.1080/02688699647131.
- Коновалов Н.А., Королишин В.А., Соленкова А.В., Никитенкова И.В., Никитин К.В., Асютин Д.С., Маргынова М.А., Тимонин С.Ю., Закиров Б.А., Капровой С.В., Батыров А.А.** Удаление гигантской невриномы в области крестца: случай из практики и обзор литературы // Вопросы нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко. 2019. Т. 83. № 2. С. 101–108. [Kononov NA, Korolishin VA, Solenkova AV, Nikitenkova IV, Nikitin KV, Asyutin DS, Martynova MA, Timonin SYU, Zakirov BA, Kaprovoy SV, Batyrov AA. Resection of a giant sacral schwannoma: case report and literature review. *Zh Vopr Neirokhir Im N N Burdenko.* 2019;83(2):101–108. In Russian]. DOI: 10.17116/neiro201983021101.
- Togral G, Arikan M, Hasturk AE, Gungor S.** Incidentally diagnosed giant invasive sacral schwannoma. Its clinical features and surgical management without stability. *Neurosciences (Riyadh).* 2014;19:224–228.
- Hosaka S, Yamamoto N, Kawamoto S, Yamashita K, Ochiai R, Okubo S, Nagao S, Inada K, Yoshida T.** [A case of giant presacral neurilemoma resected without blood transfusion after embolization of tumor vessels]. *Gan To Kagaku Ryoho.* 2010;37:2319–2321. In Japanese.
- Lador R, Regev G, Salame K, Khashan M, Lidar Z.** Use of 3-dimensional printing technology in complex spine surgeries. *World Neurosurg.* 2020;133:e327–e341. DOI: 10.1016/j.wneu.2019.09.002.
- Ahmed AK, Pennington Z, Molina CA, Xia Y, Goodwin CR, Sciubba DM.** Multi-disciplinary surgical planning for en bloc resection of malignant primary cervical spine tumors involving 3D-printed models and neoadjuvant therapies: report of 2 cases. *J Neurosurg Spine.* 2019:1–8. DOI: 10.3171/2018.9.SPINE18607.

Адрес для переписки:

Коваленко Роман Александрович
197341, Россия, Санкт-Петербург, ул. Аккуратова, 2,
Национальный медицинский исследовательский
центр им. В.А. Алмазова,
roman.kovalenko@my.com

Address correspondence to:

Kovalenko Roman Aleksandrovich
V.A. Almazov National Medical Research Center,
2 Akkuratova str., St. Petersburg, 197341, Russia,
roman.kovalenko@my.com

Статья поступила в редакцию 27.10.2020

Рецензирование пройдено 02.04.2021

Подписано в печать 08.04.2021

Received 27.10.2020

Review completed 02.04.2021

Passed for printing 08.04.2021

Роман Александрович Коваленко, канд. мед. наук, врач-нейрохирург отделения нейрохирургии № 6, Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова, Россия, 197341, Санкт-Петербург, ул. Аккуратова, 2, ORCID: 0000-0002-7940-7086, roman.kovalenko@my.com;

Василий Андреевич Кашин, аспирант кафедры нейрохирургии, Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова, Россия, 197341, Санкт-Петербург, ул. Аккуратова, 2, ORCID: 0000-0002-0626-1565, spin3d@yandex.ru;

Владислав Юрьевич Черebilло, д-р мед. наук, проф., руководитель отделения нейрохирургии № 6, Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова, Россия, 197341, Санкт-Петербург, ул. Аккуратова, 2, ORCID: 0000-0001-6803-9954, cberebillo@mail.ru;

Виктор Вадимович Руденко, канд. мед. наук, заведующий нейрохирургическим отделением, Национальный медицинский исследовательский центр травматологии и ортопедии им. Р.Р. Вредена, Россия, 195427, Санкт-Петербург, ул. Академика Байкова, 8, ORCID: 0000-0001-6803-9954, VictorRudenko@mail.ru;

Иван Николаевич Данилов, канд. мед. наук, заведующий отделением хирургических методов лечения онкологических больных, Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова, Россия, 197341, Санкт-Петербург, ул. Аккуратова, 2, ORCID: 0000-0001-9540-7812, ivandanilov75@mail.ru;

Артемиий Владимирович Чернов, заведующий отделением сердечно-сосудистой хирургии № 2, Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова, Россия, 197341, Санкт-Петербург, ул. Аккуратова, 2, ORCID: 0000-0003-3092-7774, avchernov_ssb@mail.ru;

Любовь Борисовна Митрофанова, д-р мед. наук, доцент, проф. кафедры патологии, главный научный сотрудник лаборатории патоморфологии, Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова, Россия, 197341, Санкт-Петербург, ул. Аккуратова, 2, ORCID: 0000-0003-0735-7822, lubamitr@yandex.ru.

Roman Aleksandrovich Kovalenko, MD, PhD, neurosurgeon, Neurosurgery Department No.6, Almazov National Medical Research Centre, 2 Akkuratova str., St. Petersburg, 197341, Russia, ORCID: 0000-0002-7940-7086, roman.kovalenko@my.com;

Vasily Andreyevich Kashin, post-graduate student, Neurosurgery Department, Almazov National Medical Research Centre, 2 Akkuratova str., St. Petersburg, 197341, Russia, ORCID: 0000-0002-0626-1565, spin3d@yandex.ru;

Vladislav Yuryevich Cherebillo, DMSc, Prof., Head of Neurosurgery Department No. 6, Almazov National Medical Research Centre, 2 Akkuratova str., St. Petersburg, 197341, Russia, ORCID: 0000-0001-6803-9954, cberebillo@mail.ru;

Victor Vadimovich Rudenko, MD, PhD, Head of Neurosurgical Department, Russian Scientific Research Institute of Traumatology and Orthopedics n.a. R.R. Vreden, 8 Akademiya Baikova str., St. Petersburg, 195427, Russia, ORCID: 0000-0001-6803-9954, VictorRudenko@mail.ru;

Ivan Nikolayevich Danilov, MD, PhD, Head of Department of surgical methods of treatment of cancer patients, Almazov National Medical Research Centre, 2 Akkuratova str., St. Petersburg, 197341, Russia, ORCID: 0000-0001-9540-7812, ivandanilov75@mail.ru;

Artemiy Vladimirovich Chernov, Head of Cardiovascular Surgery Department No.2, Almazov National Medical Research Centre, 2 Akkuratova str., St. Petersburg, 197341, Russia, ORCID: 0000-0003-3092-7774, avchernov_ssb@mail.ru;

Lyubov Borisovna Mitrofanova, DMSc, associate professor, Head of Pathology Unit, chief researcher of the Patbomorphology Laboratory, Almazov National Medical Research Centre, 2 Akkuratova str., St. Petersburg, 197341, Russia, ORCID: 0000-0003-0735-7822, lubamitr@yandex.ru.