

Uzbek journal of case reports. 2023. Т.3, №1.

Научная статья

УДК 616.716-006.328-076:611.018

<https://doi.org/10.55620/ujcr.3.1.2023.2>

Хондросаркома гортани (случай из практики)

Абдурахманов О.Б.¹, Худаёров М.С.², Хатамов Ш.Н.¹

¹ Клиника «Happy life medical», Ташкент, Узбекистан

² Ташкентская медицинская академия, Ташкент, Узбекистан

Автор, ответственный за переписку: Садуллаев Озод Абдуалим угли, aid_xxx@mail.ru

Аннотация

Введение. Хондросаркома гортани — редкий вид опухоли гортани, который часто недооценивается пациентами и диагностируется на поздних стадиях заболевания. Для диагностики хондросаркомы гортани необходима клиническая, гистологическая и рентгенологическая корреляция. Хотя прогноз заболевания относительно благоприятный, рекомендуется консервативное хирургическое иссечение с отрицательными краями. Статья описывает случай хондросаркомы гортани у пациента, требующего тотальной ларингэктомии.

Клинический случай. 68-летний мужчина, хронический курильщик, житель Сурхандарьинской области, с жалобами на прогрессирующую дисфонию, охриплость голоса, обструкцию дыхательных путей и одинофагию, был госпитализирован в клинику «Happy life medical» в Ташкенте в мае 2021 г. После ряда обследований была обнаружена опухоль гортани, и в плановом порядке проведено хирургическое вмешательство в объеме ларингэктомии. После гистологического исследования операционного материала была поставлен диагноз хондросаркома гортани.

Обсуждение. Хондросаркома гортани — редкое заболевание, которое может быть трудно диагностировать визуально. Образцы ткани показывают гладкие, дольчатые и полупрозрачные участки, и диагноз устанавливается на основе хрящевых критериев злокачественных новообразований. Хондросаркомы гортани могут быть связаны с доброкачественной хондромой в 62% случаев. Хирургическое вмешательство является первоначальным лечением, а терапевтические методы включают резекцию с помощью CO₂-лазера, гемикрикоидэктомию или гемиларингэктомию. Рецидивы опухоли наблюдаются у 18-40% пациентов, однако долгосрочный прогноз хондросаркомы гортани хороший, с 10-летней выживаемостью до 95%. Метастазы развиваются редко и только в 10% случаев. Лучевая терапия остается спорным методом лечения, а химиотерапия не представляет терапевтического интереса.

Выводы. Лечение хондросаркомы гортани хирургическим путем является наиболее эффективным, так как хондросаркома гортани малочувствительна к химиолучевой терапии. КТ является неотъемлемым рентгенологическим методом диагностики для установления диагноза и определения объема операции.

Ключевые слова: хондросаркома гортани, ларингэктомия, трахеостомия, крикоидэктомию, лечение

Для цитирования: Абдурахманов О.Б., Худаёров М.С., Хатамов Ш.Н. Хондросаркома гортани (случай из практики). Uzbek journal of case reports. 2023;3(1):12–16. <https://doi.org/10.55620/ujcr.3.1.2023.2>

Chondrosarcoma of larynx (case report)

Abdurakhmanov O.B.¹, Khudayorov M.S.², Khatamov Sh.N.¹

¹ «Happy life medical» clinic, Tashkent, Uzbekistan

² Tashkent medical academy, Tashkent, Uzbekistan

Corresponding author: Otabek B. Abdurakhmanov, otabek5555@mail.ru

Abstract

Introduction: Chondrosarcoma of the larynx is a rare type of laryngeal tumor that is often underestimated by patients and diagnosed at late stages of the disease. Clinical, histological, and radiological correlation is necessary for the diagnosis of chondrosarcoma of the larynx. Although the prognosis is relatively favorable, conservative surgical excision with negative margins is recommended. This article describes a case of chondrosarcoma of the larynx in a patient who required total laryngectomy.

Case report: A 68-year-old male chronic smoker from Surkhondarya region presented with complaints of progressive dysphonia, hoarseness, airway obstruction, and dysphagia, and was admitted to the «Happy Life Medical» clinic in Tashkent in May 2021. After a series of investigations, a laryngeal tumor was detected, and surgical intervention in the form of laryngectomy was carried out as planned. After histological examination of the surgical material, the diagnosis of chondrosarcoma of the larynx was established.

Discussion: Chondrosarcoma of the larynx is a rare disease that can be difficult to diagnose visually. Tissue samples show smooth, lobulated, and translucent areas, and the diagnosis is based on the cartilaginous criteria of malignant neoplasms. Chondrosarcomas of the larynx may be associated with benign chondroma in 62% of cases. Surgical intervention is the initial treatment, and therapeutic methods include CO₂ laser resection, hemikricoidectomy, or hemilaryngectomy. Tumor recurrence is observed in 18-40% of patients, but the long-term prognosis of chondrosarcoma of the larynx is good, with a 10-year survival rate of up to 95%. Metastases develop rarely and only in 10% of cases. Radiation therapy remains a controversial treatment method, and chemotherapy is not therapeutically effective.

Conclusion: Surgical treatment of chondrosarcoma of the larynx is the most effective as it is relatively insensitive to chemotherapy and radiation therapy. CT is an integral radiological diagnostic method for establishing the diagnosis and determining the scope of the operation.

Keywords: chondrosarcoma of the larynx, laryngectomy, tracheostomy, crycoidectomy, treatment

For citation: Abdurakhmanov OB., Khudayorov MS., Khatamov ShN. Chondrosarcoma of larynx (case report). Uzbek journal of case reports. 2023;3(1):12–16. <https://doi.org/10.55620/ujcr.3.1.2023.2>. (In Russ).

ВВЕДЕНИЕ

Хондросаркома гортани — редкая опухоль, составляющая около 1% всех новообразований гортани [2]. Впервые она была описана Трэверсом в 1816 году [3], но термин хондросаркома на этом сайте был введен Нью в 1935 году [4]. С 1816 г. в литературных источниках описано около 300 наблюдений хондросаркомы гортани. Чаще всего заболевают мужчины в возрасте 50-70 лет. В 70% случаев поражается перстневидный хрящ, в 20% — щитовидный хрящ, реже опухоли локализируются в области

черпаловидного хряща — 10% [4].

Различают первичную и вторичную хондросаркому гортани. Первичная хондросаркома может развиваться из сохранившихся эмбриональных островков хряща или из недифференцированных мультипотентных клеток мезенхимального происхождения. Вторичная хондросаркома развивается в результате малигнизации хондромы, остеохондромы. Ряд авторов описывают развитие опухоли на фоне множественных травм и операций.



Рис. 1.

Прямая ларингоскопическая проба показала левую парамедиальную голосовую щель и подвязочную опухоль, окруженную интактной слизистой оболочкой и неподвижным гомолатеральным полушарием (стрелка).

Fig 1.

Direct laryngoscopy revealed a left paramedian vocal cord gap and a submucosal mass involving the vocal cord, surrounded by intact mucosa and a non-mobile ipsilateral arytenoid cartilage (arrow).



Рис. 2.

Компьютерная томограмма шеи пациента — аксиальная проекция. В проекции гортани определяется объемное образование размером до 4,8x4,8x4,1 см, +33+46 едН, неоднородной структуры

Fig. 2.

The patient's neck CT scan is an axial projection. The larynx demonstrates a volumetric formation measuring up to 4.8x4.8x4.1 cm, +33+46 HU, with a heterogeneous structure.

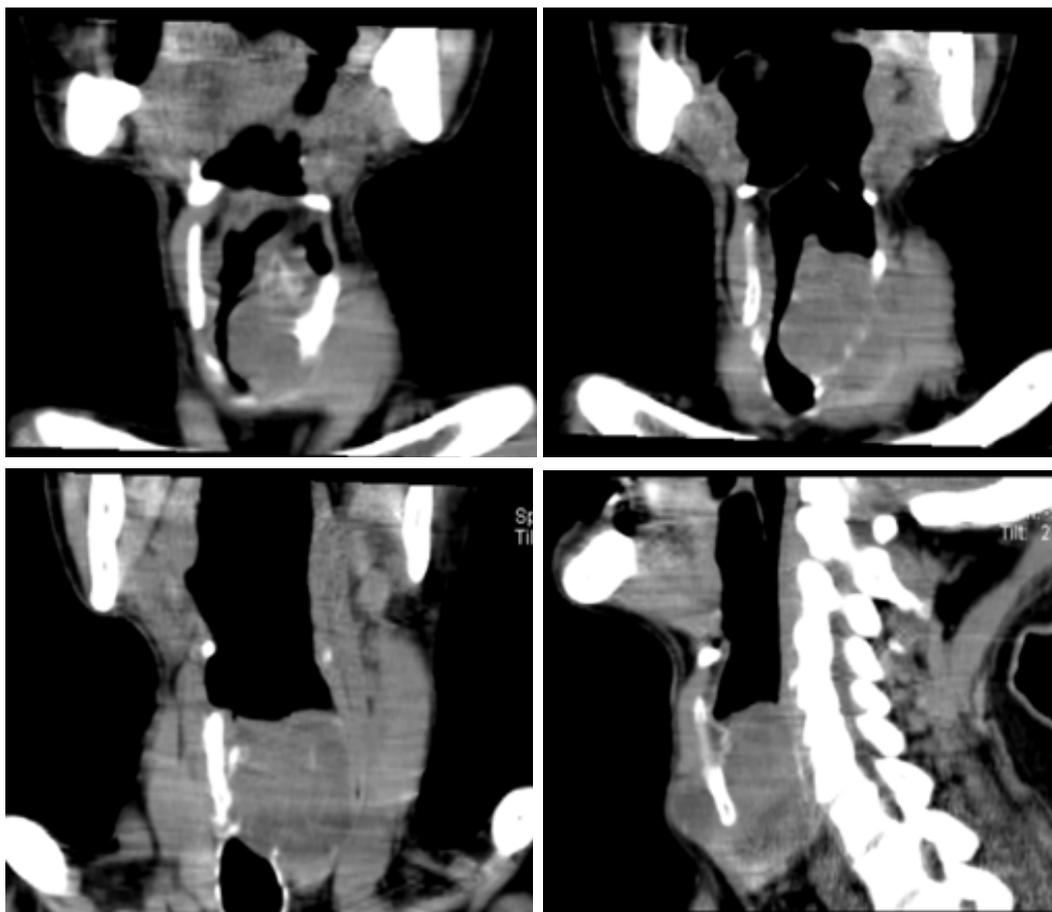


Рис. 3.

Компьютерная томограмма шеи пациента — фронтальная проекция и сагиттальная проекция. В проекции гортани определяется объемное образование размером до 4,8x4,8x4,1 см, +33+46 едН, неоднородной структуры.

Fig. 3.

The patient's neck CT scan includes both a frontal and sagittal projection. In the larynx projection, a volumetric formation with dimensions of up to 4.8x4.8x4.1 cm, +33+46 HU, and a heterogeneous structure is identified.

Ранняя диагностика хондросаркомы гортани вызывает затруднения из-за того, что пациенты часто недооценивают свои ощущения, обращаются к врачу на III-IV стадиях заболевания.

Диагноз требует клинической, гистологической и рентгенологической корреляции. Обычно он демонстрирует низкую гистологию с довольно вялотекущим прогрессированием и относительно низкой вероятностью метастатического потенциала или рецидива. По этой причине рекомендуется консервативное хирургическое иссечение с отрицательными краями [5]. Мы представляем случай хондросаркомы гортани из перстневидного хряща у пациента, у которого были охриплость голоса, одышка и компьютерная томография шейно-лицевой области, выявившая большую опухоль, требующую тотальной ларингэктомии.

В мае 2021 г. в ЛОР-клинике «Happy life medical» города Ташкента находился 68-летний больной, житель Сурхандарьинской области, хронический курильщик, в анамнезе имел прогрессирующую дисфонию, охриплость голоса, обструкцию дыхательных путей и усиливающуюся одышку в течение 12-месячного периода с диагнозом: хондросаркома гортани. Из анамнеза у пациента охриплость наблюдалась с лета 2020 г. К врачам не обращался. В январе 2021 г. появились и стали прогрессивно нарастать жалобы на затруднение дыхания

через естественные дыхательные пути и одышку. В мае с диагнозом «стеноз гортани» был госпитализирован в ЛОР-отделение клиники «Happy life medical» для проведения в срочном порядке операции трахеостомии. После ряда обследований была выявлена опухоль гортани.

Прямая фиброларингоскопия (15.05.2021): определяется опухоль больших размеров, занимающая весь просвет гортани, начиная от ее вестибулярного отдела. Определить зону роста опухоли невозможно. Слизистая оболочка над опухолью не изменена — розовая, гладкая, эластичная. Грушевидные синусы не визуализируются (Рис.1).

МСКТ мягких тканей шеи (16.05.2021): на серии компьютерных томограмм в пространстве гортани слева на уровне VC 5-6 позвонков определяется объемное образование, прорастающее в окружающие мягкие ткани, с неровными, не четкими контурами, общими размерами 4,8x4,8x4,1 см, +33+46 едН. Образование выходит за пределы нижнего края хряща щитовидной железы и значительно суживает просвет трахеи (не исключено прорастание в их просвет). Также образование тесно прилежит к верхнему контуру левой доли щитовидной железы. Границы между образованием и выше перечисленными структурами нечеткие. Прилежащие отделы хрящевых и костных структур — с признаками деструкции. Заключение: МСКТ признаки объемного

образования в пространстве гортани слева с распространением в окружающие ткани (Рис.2).

Учитывая распространенность опухоли, в плановом порядке проведено хирургическое вмешательство в объеме ларингэктомия. Образование удалено в пределах здоровых тканей.

Заключение гистологического исследования операционного материала от 24.05.2021: узловое образование представлено разрастаниями на большем протяжении гиалинового хряща с распространением на прилежащие скелетные мышцы, наличием изогенных групп различного размера, ядерным полиморфизмом хондроцитов, дистрофическими изменениями матрикса, включени-

ями костных балок и очагами некроза. Гиалиновый хрящ, состоящий из долек двуядерных хондроцитов с увеличенным соотношением ядра к цитоплазме. Митотическая активность не обнаружена. Не было никаких доказательств миксоидного матрикса и любых участков некроза. Перифокально: выраженная воспалительная инфильтрация с преобладанием нейтрофильных лейкоцитов. Эти результаты являются диагностическими для хондросаркомы гортани высокой степени (степень 1 из 3).

Послеоперационный период протекал без осложнений. Рана зажила первичным натяжением. Назогастральный зонд удален на 14-е сутки.

ОБСУЖДЕНИЕ

Хондросаркома гортани — редкая опухоль, составляющая менее 1% всех сарком тела. Опухоль чаще всего возникает из перстневидного хряща и реже из черпаловидного и щитовидного хрящей [6]. Этиология хондросаркомы гортани неточна, но, по-видимому, она является результатом нарушения оссификации хряща гортани [7]. Текущие данные не показывают причинно-следственной связи с курением или употреблением алкоголя [2]. Средний возраст постановки диагноза составляет от 60 до 64 лет с преобладанием мужчин [8]. Симптомы варьируются в зависимости от локализации образования и включают охриплость голоса (у большинства пациентов), вызванную сужением голосовой щели и сдавлением нижних гортанных нервов; одышка и обструкция дыхательных путей из-за эндоларингеального роста; дисфагия из-за экстраларингеального разрастания, возникающая в заднем перстневидном пространстве; и образование (масса) шеи из-за опухолевого поражения хряща щитовидной железы [7]. Визуализация, включая КТ, МРТ или рентген, играет важную роль в предположении хондроидного новообразования. Обычно наблюдается обширное поражение с переменной плотностью и характерными «попкорновыми» кальцификациями [2].

Хондросаркомы гортани имеют гистологический низкую степень злокачественности, и визуализация не всегда однозначно дифференцирует хондросаркому I степени от доброкачественной хондромы, зная, что эти два поражения могут быть связаны с 62% случаев [5]. Может присутствовать инвазия в прилегающие мягкие ткани или кость. Макроскопически опухоль имеет размер от менее 1 см до 10 см. Образец часто получают фрагментированным, и он постоянно показывает гладкие, дольчатые и полупрозрачные участки ткани [6]. Гистологический диагноз основан на критериях хрящевых злокачественных новообразований, описанных Лихтенштейном и Ялэйном в 1943 г. [9]. Существуют различные степени хондросаркомы: (I) Степень 1: похоже на хондрому, более двух ядер, отсутствие митозов, некоторые области кальцификации и костная ткань (70–80% случаев) (II)

Степень 2: увеличение числа клеток, низкое ядерное / цитоплазматическое соотношение, редкие митозы (10–15% случаев) (III) Степень 3: многоядерные клетки, повышенное ядерное/ цитоплазматическое соотношение, большое количество митозов (5–10% случаев).

Около 80% хондросарком гортани относятся к низкой степени злокачественности и обычно хорошо дифференцируются с менее агрессивным типом хондросаркомы по сравнению с хондросаркомой более распространенной формы. Первоначальным лечением хондросаркомы гортани является хирургическое вмешательство [11]. Цель состоит в том, чтобы получить полное иссечение с отрицательными полями [12]. При опухолях низкой степени злокачественности терапевтические методы включают резекцию с помощью CO₂-лазера, гемикрикоидэктомию или гемиларингэктомию. При опухолях высокой степени злокачественности и рецидивах методом выбора является тотальная ларингэктомия. Когда выполняется крикоидэктомию, для закрытия дефекта используется ларинготрахеальный анастомоз. Эффективность лучевой терапии до сих пор остается спорной. Химиотерапия не представляет терапевтического интереса [10]. По данным литературы, частота рецидивов опухоли колеблется от 18 до 40% [2]. Тем не менее долгосрочный прогноз хондросаркомы гортани хороший (95%, 10-летняя выживаемость) [2]. Метастатический потенциал редко встречается при хондросаркоме 1 степени и наблюдается только в 10% поражений 2 степени [4]. Изучение 111 случаев, проведенное Институтом патологии Вооруженных сил, показало, что только в 1,9% случаев развились метастазы [6]. По результатам наших исследования пятнадцать месяцев спустя рентгенологические и клинические данные не показали никаких признаков рецидива или метастазов. По этой причине консервативная терапия является методом выбора. Тотальная ларингэктомия применяется при больших опухолях, хирургическое вмешательство которых может вызвать дестабилизацию перстневидного хряща [7].

ВЫВОД

Хондросаркома гортани течет медленными и малозаметными симптомами. В связи с этим больные обращаются врачам более поздних стадиях заболевания (III, IV стадиях). Так как она малочувствительна к химиолучевую терапию рекомендуется лечения больных хи-

рургическим путем в несколько объемах в зависимости от распространенности заболевания. КТ является неотъемлемым рентгенологическим методом диагностики для вставление диагноза и определении объема операции.

ЛИТЕРАТУРА

1. Мустафаев Д.М. Наблюдение хондросаркомы гортани. Вестник оториноларингологии.2018;83(2):54-55. <https://doi.org/10.17116/otorino201883254-55>.
2. Buda R.H, Feinmesser R., Shvero J. Chondrosarcoma of the larynx. The Israel Medical Association Journal. 2012;14(11):681-684.
3. Travers F.A. Caseof Ossification and Bony Growth of the Cartilages of the Larynx, Preventing Deglutition. Journal of the Royal Society of Medicine, 1816;7(1):150- 153.

4. New G.B. Sarcoma of the larynx: report of two cases. Archives of otolaryngology, 1935;21(6):648–652.
5. Potochny E.M., Huber A.R. Laryngeal chondrosarcoma. Head and Neck Pathology. 2014;8(1):114–116.
6. Thompson L.D.R., Gannon F.H. Chondrosarcoma of the larynx: a clinicopathologic study of 111 cases with a review of the literature. American Journal of Surgical Pathology. 2002;26(7):836–851.
7. Casiraghi O., Martinez-Madrigal F., Pineda-Daboin K., Mamelie G., Resta L., Luna M.A. Chondroid tumors of the larynx: a clinicopathologic study of 19 cases, including two differentiated chondrosarcomas. Annals of Diagnostic Pathology. 2004;8(4):189–197.
8. Wang Q., Chen H., and Zhou S. Chondrosarcoma of the larynx: report of two cases and review of the literature. International Journal of Clinical and Experimental Pathology. 2015;8(2):2068–2073.
9. Lichtenstein L. and Jaffe H. Chondrosarcoma of bone. American Journal of Pathology. 1943;19(4):553–589.
10. Rinaldo, Howard D.J., Ferlito A. Laryngeal chondrosarcoma: a 24-year experience at the Royal National Throat, Nose and Ear Hospital. Acta Otolaryngologica. 2000;120(6):680–688.
11. Gil Z., Fliss D.M. Contemporary management of head and neck cancers. The Israel Medical Association Journal. 2009;11(5):96–300.
12. Gripp S., Pape H., Schmitt G. Chondrosarcoma of the larynx: the role of radiotherapy revisited – a case report and review of the literature. Cancer. 1998;82(1):108–115.

REFERENCES

1. Mustafaev DM. Observation of chondrosarcoma of the larynx. Bulletin of Otorhinolaryngology. 2018;83(2):54–55 (In Russ).
2. Buda RH, Feinmesser R, Shvero J. Chondrosarcoma of the larynx. The Israel Medical Association Journal. 2012;14(11):681–684.
3. Travers FA. Case of Ossification and Bony Growth of the Cartilages of the Larynx, Preventing Deglutition. Journal of the Royal Society of Medicine, 1816;7(1):150–153.
4. New GB. Sarcoma of the larynx: report of two cases. Archives of otolaryngology, 1935;21(6):648–652.
5. Potochny EM, Huber AR. Laryngeal chondrosarcoma. Head and Neck Pathology. 2014;8(1):114–116.
6. Thompson LDR, Gannon FH. Chondrosarcoma of the larynx: a clinicopathologic study of 111 cases with a review of the literature. American Journal of Surgical Pathology. 2002;26(7):836–851.
7. Casiraghi O, Martinez-Madrigal F, Pineda-Daboin K, Mamelie G, Resta L, Luna MA. Chondroid tumors of the larynx: a clinicopathologic study of 19 cases, including two differentiated chondrosarcomas. Annals of Diagnostic Pathology. 2004;8(4):189–197.
8. Wang Q, Chen H, Zhou S. Chondrosarcoma of the larynx: report of two cases and review of the literature. International Journal of Clinical and Experimental Pathology. 2015;8(2):2068–2073.
9. Lichtenstein L, Jaffe H. Chondrosarcoma of bone. American Journal of Pathology. 1943;19(4):553–589.
10. Rinaldo, Howard DJ, Ferlito A. Laryngeal chondrosarcoma: a 24-year experience at the Royal National Throat, Nose and Ear Hospital. Acta Otolaryngologica. 2000;120(6):680–688.
11. Gil Z, Fliss DM. Contemporary management of head and neck cancers. The Israel Medical Association Journal. 2009;11(5):96–300.
12. Gripp S, Pape H, Schmitt G. Chondrosarcoma of the larynx: the role of radiotherapy revisited – a case report and review of the literature. Cancer. 1998;82(1):108–115.

Статья поступила в редакцию 30.12.2022; одобрена после рецензирования 31.01.2023; принята к публикации 13.13.2023.
The article was submitted 30.12.2022; approved after reviewing 31.01.2023; accepted for publication 13.13.2023.

Информация об авторах:

Абдурахмонов Отабек Бахтиёрович — д.м.н, врач онколог области головы и шеи клиники «Happy life medical», Ташкент, Узбекистан. e-mail: otabek5555@mail.ru.

Худаёров Мурод Сарварович — ассистент кафедры онкологии Ташкентской медицинской академии, Ташкент, Узбекистан. e-mail: med_ded@mail.ru.

Хатамов Шухрат Нормухаммадович — к.м.н. врач онколог области головы и шеи клиники «Happy life medical», Ташкент, Узбекистан. e-mail: render82@mail.ru.

Information about the authors:

Otabek B. Abdurakhmanov — DSc, head and neck oncologist of «Happy life medical» clinic, Tashkent, Uzbekistan. e-mail: otabek5555@mail.ru.

Murod S. Khudayorov — teacher of the department of oncology at Tashkent medical academy, Tashkent, Uzbekistan. e-mail: med_ded@mail.ru.

Shukhrat N. Khatamov — PhD, head and neck oncologist of «Happy life medical» clinic, Tashkent, Uzbekistan. e-mail: render82@mail.ru.

Источники финансирования: Работа не имела специального финансирования.

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

Вклад авторов: Абдурахмонов О.Б. — концепция и дизайн исследования; оценка результатов исследования; Худаёров М.С. — написание статьи, внесение изменений в текст, обработка материалов; Хатамов Ш.Н. — написание статьи, внесение изменений в текст, обработка материалов.

Sources of funding: The work did not receive any specific funding.

Conflict of interest: The authors declare no explicit or potential conflicts of interest associated with the publication of this article.

Author contributions: Abdurakhmonov O.B. — research concept and design; evaluation of research results; Khudayorov M.S. — article writing, editing text, data processing; Khatamov Sh.N. — article writing, editing text, data processing.