

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ ЭХИНОКОККОЗА СЕРДЦА

Жукова С.И., Макаров И.А., Рыжкова Д.В., Гребенник В.К., Митрофанова Л.Б.

ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр имени В.А. Алмазова»

Минздрава России, Санкт-Петербург, Аккуратова 2, 197143

+79315329832, doctormakarovia@gmail.com

Резюме

Поражение сердца является необычным проявлением эхинококкового заболевания и составляет 0,5-3% от всех локализаций. Приведен клинический случай рецидива эхинококкоза сердца с образованием кист в области правого желудочка спустя 24 года после первичного хирургического лечения. Все это время у пациента медленно нарастала клиника сердечной недостаточности на фоне атеросклероза коронарных артерий. Патоморфологическое исследование операционного материала после кардиохирургического удаления кист подтвердило наличие эхинококковой кисты с нагноением, образованием абсцессов и перифокальным гранулематозным воспалением.

Ключевые слова: *сердечный эхинококкоз, морфологическое исследование, ПЭТ-КТ, кардиохирургическое лечение*

CASE REPORT OF ECHINOCOCCOSIS OF THE HEART

Zhukova S.I., Makarov I.A., Ryzhkova D.V., Grebennik V.K., Mitrofanova L.B.

Federal State Budgetary Institution "V.A. Almazov National Medical Research Center" of the Ministry of Health of the Russian Federation, St. Petersburg, Akkuratova 2, 197143

+79315329832, doctormakarovia@gmail.com

Summary

Heart lesion is an unusual manifestation of echinococcal disease and accounts for 0.5-3% of all localizations. Case report is presented of recurrence of cardiac echinococcosis with the formation of cysts in the area of the right ventricle 24 years after the primary surgical treatment. All this time, the patient slowly developed a clinic of heart failure against the background of atherosclerosis of the coronary arteries. Pathological examination of the surgical material after cardiac surgical removal of cysts confirmed the presence of an echinococcal cyst with suppuration, abscess formation, and perifocal granulomatous inflammation.

Key words: *cardiac echinococcosis, morphological examination, PET-CT, cardiac surgery*

Введение

Число инфекционных и паразитарных заболеваний на территории Российской Федерации остается на высоком уровне и составляет до 32.1 случаев на 1000 человек на период с 2012 по 2022 год. Эхинококкоз, как гельминтоз, достаточно распространен и опасен для населения вследствие большого количества овцеводческих ферм и подсобных хозяйств, так как домашний скот является окончательным хозяином паразита и фактором риска для заражения человека.

Эхинококкоз относится к хроническим заболеваниям, обусловленным поражением органов и тканей человека личинками ленточного гельминта отряда циклофиллид (*Cyclophyllidae*) эхинококка.

Эхинококк не может существовать и размножаться самостоятельно. В его жизненном цикле присутствуют два хозяина – промежуточный и окончательный. Окончательным хозяином, в организме которого протекает половозрелая стадия эхинококка, может быть домашняя собака, овца, волк, шакал, лисица, рысь. Промежуточным хозяином, в организме которого протекает личиночная (пузырчатая) стадия, является овца, крупный рогатый скот, свинья, лошадь, коза, обезьяна, белка, заяц, а также человек.

По данным ВОЗ на каждый конкретный момент времени эхинококкозом поражено более 1 миллиона человек. Инфицирование человека *Echinococcus granulosus* приводит к развитию одной или нескольких гидатидных кист, локализованных чаще всего в печени и легких и реже в костях, почках, селезенке, мышцах и центральной нервной системе [1].

Попадая в желудочно-кишечный тракт человека, паразиты с помощью крючьев фиксируются на слизистой оболочке кишки, затем пробуравливают ее и проникают в сосуды, заносятся в воротную вену и могут оседать в печени, задерживаться в легочных капиллярах, либо в других органах. Некоторые личинки могут выйти через печеночный фильтр, попасть в большой круг кровообращения и осесть в том числе в сердце [2, 3]. Эхинококковая болезнь сердца, чрезвычайно редкое заболевание, впервые была описана Уильямсом в 1836 г.

Прикрепление паразита и развитие онкосферы ведет к формированию личиночной стадии – метацестоды, непосредственно кисты эхинококка, с формированием центральной полости и развитием герминативной и кутикулярной оболочек.

Цель: представить и обсудить редкий случай рецидивирующего эхинококкоза сердца.

Клинический случай

Пациент 60 лет. Считал себя здоровым до 36-ти лет, когда на фоне полного благополучия стал отмечать незначительную одышку, слабость, болезненные ощущения в области сердца, фебрильную лихорадку. По результатам дополнительных исследований был впервые поставлен диагноз эхинококковой кисты правого желудочка и проведено кардиохирургическое лечение в объёме удаления кисты в пределах здоровых тканей. Последующее патоморфологическое исследование подтвердило диагноз. В послеоперационном периоде проводилась антигельминтная терапия широкого спектра действия (мебендазолом с последующей сменой на альбендазол) на протяжении 22-ух лет, после чего пациент самостоятельно отменил препарат.

После оперативного лечения пациент отмечал ангинозные боли, нарушения ритма сердца по типу учащенного сердцебиения с замираниями. Также впоследствии присоединились признаки хронической сердечной недостаточности в виде отёчного синдрома, одышки при физической нагрузке. Пациент с вышеуказанными жалобами не обследовался вплоть до 2020 года, принимал только верапамил.

В 2020 году (в возрасте 58-ми лет) выполнена коронарная ангиография: выявлены стеноз передней межжелудочковой коронарной артерии 75-90%, стеноз правой коронарной артерии 75-90%. Также выполнено стресс-ЭХО-КГ, определены показания к аортокоронарному шунтированию, которое не было выполнено в связи с эпидемиологической обстановкой.

При магнитно-резонансной томографии сердца выявлен конгломерат эхинококковых кист латерального апикального миокарда правого желудочка, размером 28x31x74мм (состоит из 4 кист диаметром 17-27 мм), с выступом в полость правого желудочка и полость перикарда.

При чреспищеводной эхокардиографии подтвердилось наличие неправильной формы образования с жидкостным содержимым и участками кальциноза, проникающее из полости перикарда в полость правого желудочка через стенку правого желудочка на протяжении около 15,0 мм, размерами не менее 5.0x5.0 см, в месте контакта с правым желудочком, миокард стенки правого желудочка не визуализируется, что говорило об инвазивном росте.

На торакоабдоминальной компьютерной томографии органов грудной клетки и позитронно-эмиссионной томографии органов грудной клетки не только подтвердилось наличие кистозного образования средостения с частичным обызвествлением по периферии, но также были обнаружены частично кальцинированные структуры в легочной ткани с двух сторон (вероятнее всего, диссеминация паразитарного характера) [2] (Рис. 1).

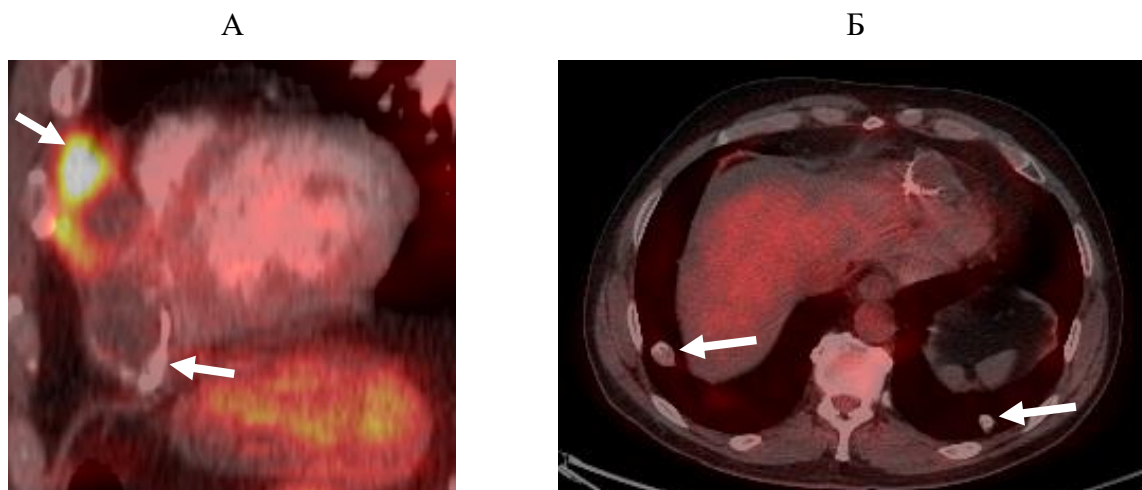


Рисунок 1. Совмещенная позитронная эмиссионная и рентгеновская компьютерная томография органов грудной клетки с [18F]-фтордезоксиглюкозой. А – представлено ПЭТ-КТ изображение сердца в сагиттальной проекции, стрелками указаны две эхинококковые кисты, в стенке кисты, расположенной краниально, отмечается повышенное накопление [18F]-фтордезоксиглюкозы, что свидетельствует об активном воспалительном процессе; в стенке кисты, расположенной каудально, определяется отложение извести; Б – представлено ПЭТ-КТ изображение легких в аксиальной проекции, стрелками указаны частично кальцинированные очаги в легких без накопления [18F]-фтордезоксиглюкозы.

При лабораторном исследовании крови титр специфических антител IgG к *Echinococcus* показал высокий уровень – 1:800.

Вследствие высокого риска разрыва кисты и диссеминации возбудителя, а также высокого риска тромбоэмболических осложнений было принято решение о проведении кардиохирургического лечения в объеме удаления кисты и выполнении аортокоронарного шунтирования.

При ревизии стенок миокарда определялись две эхинококковые кисты (одна в области верхушки правого желудочка, вторая в области передней стенки правого желудочка) в толще миокарда. Выполнено удаление кист без вскрытия их капсул (Рис. 2). В области дефекта правого желудочка выполнена пластика стенки с помощью ксеноперикара.



Рисунок 2. Интраоперационные фотографии эхинококковой кисты. а – общий вид кист со стороны эпикарда, пунктиром обозначены кисты, стрелкой эпикард; б – мобилизация кист, стрелкой обозначено место прикрепление кист к эпикарду; в – удаление кист

После удаления кист произведен культуральный посев содержимого кист, со среды обогащения выделены *Staphylococcus hominis*, *Staphylococcus gallinarum*, *Pantoea septica*.

После фиксации макропрепарата в растворе формалина, материал представлял собой фрагмент перикарда с двумя многокамерными кистами, общим размером 12.0x8.0x1.5 см. Первая киста размером 3.0x4.0 см, толщина стенки от 0.2 до 0.9 см, стенка с очаговым кальцинозом, с гладкой, серой наружной поверхностью, и мелкобугристой, серо-желтой внутренней поверхностью. Вторая киста размером 3.5x2.0x0.3 см, со стенками аналогичного вида. Кисты содержат сливкообразную, густую желтую жидкость (Рис. 3).

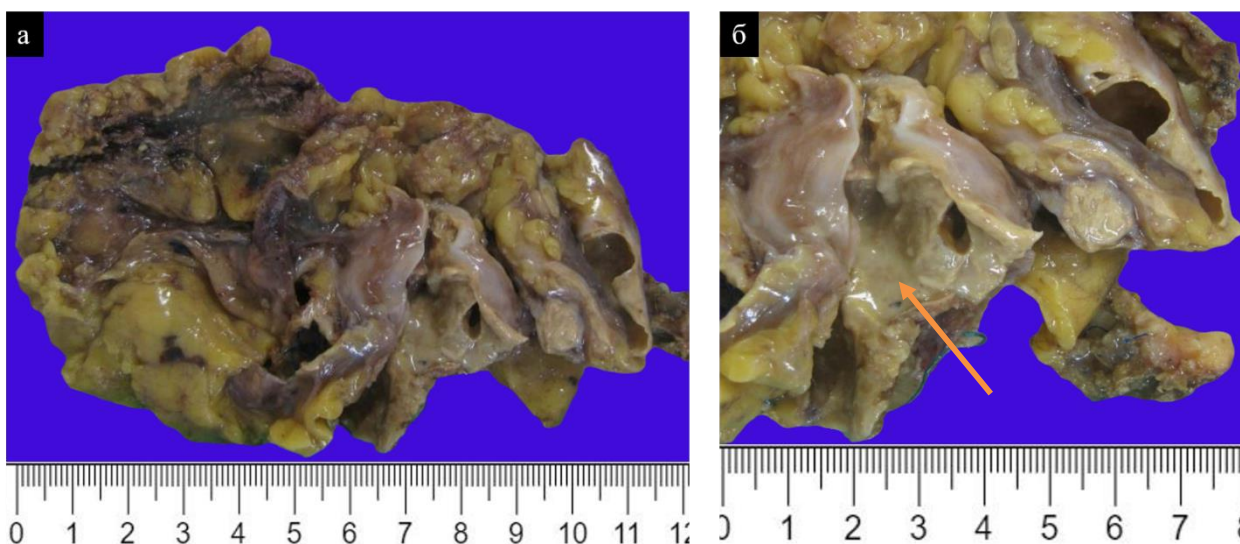


Рисунок 3. Макроскопический вид эхинококковых кист. а – многокамерные кисты среди жировой ткани; б – гноевидное содержимое кисты (указано стрелкой).

При гистологическом исследовании стенки кист представлены плотной фиброзной тканью с толстостенными полнокровными сосудами, с большим количеством пенистых клеток, с многоядерными гигантскими клетками по типу клеток инородных тел, с полями грануляционной ткани. Внутренняя поверхность кист тотально некротизирована с образованием большого количества тканевого детрита с нейтрофильными лейкоцитами. В одной из кист фрагменты хитиновой капсулы и некротизированные тени сколекса эхинококков (Рис. 4).

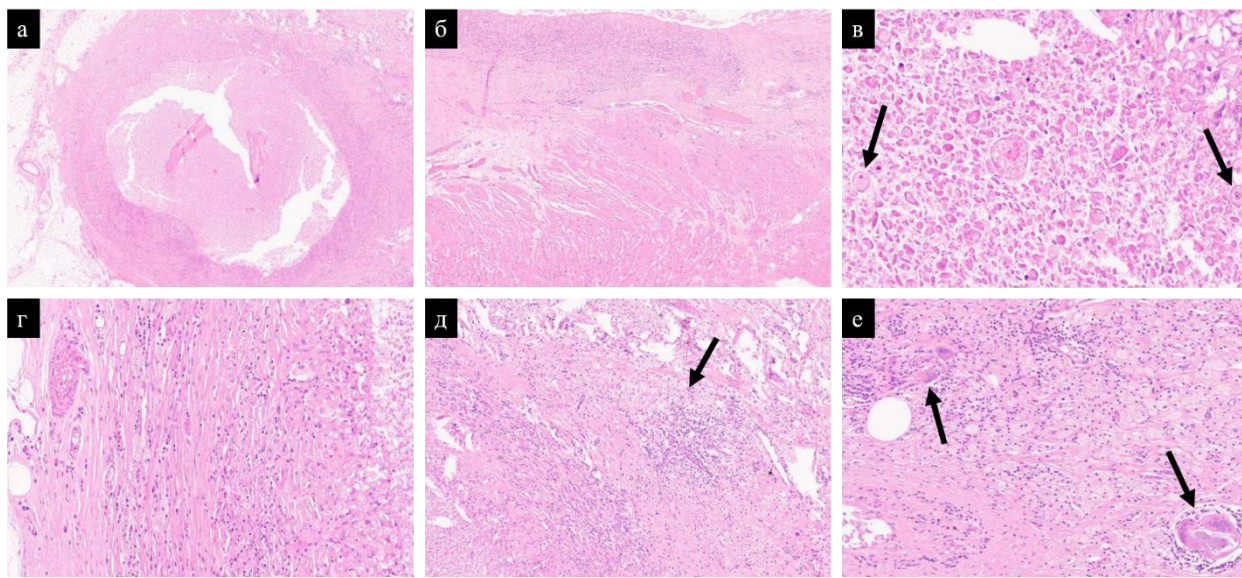


Рисунок 4. Гистологические исследование эхинококковых кист. а – общий вид стенки кисты и содержимого, x20; б – участок стенки кисты с подлежащим миокардом, x40; в – тени протосколекса среди тканевого детрита содержимого кисты (указаны стрелками), x100; г – грануляционная ткань в стенке кисты, x100; д – скопление пенистых клеток в стенке кисты (указаны стрелкой), x100; е – гигантские многоядерные клетки инородных тел в окружающих тканях кисты, окраска гематоксилином и эозином, x100.

В раннем послеоперационном периоде был зафиксирован эпизод пароксизма фибрилляции – трепетания предсердий. Была проведена антиаритмическая и электроимпульсная терапия с восстановлением синусового ритма. При эхокардиографии пациента в послеоперационном периоде зон акинезии и гипокинезии не обнаружено. При лабораторном исследовании крови наблюдался прогрессирующий лейкоцитоз и рост в динамике С-реактивного белка, что может свидетельствовать о паразитарной диссеминации в легких, что является поводом для дальнейшего диагностического поиска у данного пациента.

Обсуждение

Сердечное расположение эхинококка является необычным проявлением заболевания и составляет 0,5-3% от всех локализаций. В основном паразиты достигают сердца через коронарные артерии, по этой причине миокард левого желудочка является наиболее частой локализацией (60%), менее частыми областями - правый желудочек (10%), перикард (7%), левое предсердие (6–8%) и правое предсердие (3–4%). Межжелудочковая перегородка является особенно редким местом, в котором развиваются эхинококковые кисты – около 4% [4, 5, 6].

Заражение человека и других промежуточных хозяев происходит при несоблюдении личной гигиены, а также употреблении пищи, содержащей яйца эхинококка. Зрелые членики эхинококка выделяются наружу вместе с фекалиями окончательного хозяина. Яйца распространяются во внешней среде, а также попадают на морду, язык, шерсть животного. Тесный контакт с животным может стать причиной заражения человека. Во внешней среде онкосферы эхинококка весьма устойчивы. Не исключена возможность заражения при употреблении в пищу сырых овощей, выращенных на огороде, загрязненном экскрементами эхинококковой собаки. Обычно эхинококком заражаются в детском возрасте, выявлению болезни предшествует латентный период от пяти до двадцати лет. Характер симптомов зависит от локализации, формы и скорости роста кисты и обусловленных ею патологических изменений [7, 8].

Так наличие кист в выходном тракте левого желудочка приводит к его обструкции, повреждению митрального клапана и сдавлению коронарных артерий, что может клинически манифестировать как острый коронарный синдром. Сердечные аритмии возникают при механическом воздействии на проводящую систему сердца. Это часто наблюдается при поражении кистами межжелудочковой перегородки. К перикардiallyму выпоту и тампонаде перикарда, а также к развитию констриктивного перикардита могут привести эхинококковые кисты, расположенные в перикарде.

При разрыве эхинококковой кисты происходит выделение содержимого в кровоток, что может вызвать анафилаксию с нарушением кровообращения и смерть пациентов. Если на этом этапе пациент выживает, то в дальнейшем у него образуются метастатические гидатидные кисты, также возможны системные эмболии, в том числе эмболии лёгочных артерий [9].

Диагноз эхинококкоза сердца труден вследствие отсутствия типичных патогномоничных симптомов заболевания. Наиболее легко заподозрить эхинококкоз сердца у пациентов с неблагоприятным эпидемиологическим анамнезом в эндемичных регионах при наличии у пациентов атипичных кардиальных синдромов.

Эхокардиография является наиболее чувствительным и специфичным инструментом для диагностики эхинококковых кист, их местоположения, размера и давления на различные структуры сердца. Более информативным методом является чреспищеводная эхокардиография - вследствие лучшей визуализации процесса.

Другим доступным инструментом является КТ либо МРТ сердца [10]. Эти методы позволяют более точно определить инвазию кист в те или иные структуры сердца, определить предполагаемые зоны резекции. Совмещенная позитронная эмиссионная томография с [18F]-фтордезоксиглюкозой дает возможность оценки активности воспалительного процесса в стенках эхинококковых кист. Повышенный кровоток и инфильтрация ткани активированными нейтрофилами и макрофагами, в которых наблюдается гиперэкспрессия глюкозотранспортных белков 1 и 3 типов, приводят к гипераккумуляции радиофармацевтического препарата в участках воспаления.

Коронарография может быть полезна при дифференциальной диагностике ишемической болезни сердца и при отсутствии структурных изменений в сердце на предыдущих этапах обследования.

Серология эхинококковых кист полезна для подтверждения диагноза; однако исследования показывают, что чувствительность этого метода низкая, с ложноотрицательными результатами до 50%.

Дифференциальный диагноз включает внутрисердечные опухоли, врожденные кисты и аневризмы желудочков. Хирургическое иссечение является методом выбора даже у пациентов с бессимптомным течением. Иссечение эхинококковых кист миокарда может быть связано с такими осложнениями, как повреждение структур сердца, разрыв кисты, эмболизация герминативной оболочки и контаминация окружающих структур.

Патоморфологическое исследование является важным этапом в диагностике эхинококкоза, оно помогает определить природу кист и достоверно оценить инвазию в миокард. Так патоморфологически эхинококковая киста представляет собой плотную соединительнотканную капсулу, образующейся в результате защитных реакций промежуточного хозяина против продуктов метаболизма паразита и несущей своеобразную скелетную и защитные функции, предохраняя паразита от механических повреждений и не прекращающейся на всем протяжении инвазии иммунной атаки хозяина. Герминативная (внутренняя) оболочка является носителем всех жизненных функций паразита. Она состоит из синцитиальных эпителиальных слоев и разделена на три зоны: камбиальную (пристеночную), зону известковых телец (среднюю) и зону выводковых капсул с формирующимися протосколексами – зародышевыми элементами эхинококка. Полость эхинококковой цисты заполнена жидкостью, которая является продуктом секреции

герминативной оболочки и содержит необходимые для паразита питательные вещества и продукты его метаболизма. Она представляет собой смесь продуктов обмена паразита в транссудате крови хозяина.

Антигельминтная терапия может привести к гибели кисты и разрушению ее стенки, что приведет к разрыву кисты. Поэтому такие препараты не рекомендуется использовать до хирургического удаления. Антигельминтная терапия рекомендуется при отказе от хирургического лечения или при неоперабельности больного, а также в послеоперационном периоде с целью элиминации оставшихся гельминтов и предотвращения рецидивов заболевания [11].

В 1995 г. WHO-IWGE (World Health Organization-Informal Working Groups on Echinococcosis) разработала стандартизированную классификацию кистозного эхинококкоза, которую можно было применять во всех условиях. В 2001 г. ВОЗ совместно со Всемирной организацией охраны здоровья животных опубликовала Руководство по эхинококкозу людей и животных: проблема общественного здравоохранения, имеющая глобальное значение. В 2009 г. был опубликован консенсус WHO-IWGE по диагностике и лечению кистозного эхинококкоза и альвеолярного эхинококкоза [12], содержащий обновленные рекомендации по диагностике и лечению, которые в настоящее время находятся в процессе пересмотра диагноза и связанного с ним клинического ведения эхинококкоза и разработки технических руководств, применимых на практике. Было создано несколько рабочих групп для охвата различных аспектов заболеваний, и они работают над созданием этих документов. Группы также работают над продвижением сбора и картирования эпидемиологических данных.

Заключение

Внутрисердечный эхинококкоз – редкое заболевание, не имеющее специфичных клинических проявлений. Приведен пример пациента с рецидивом эхинококкоза правого желудочка, не смотря на радикальное оперативное лечение и длительную антигельминтную терапию. Современные диагностические методы и исследования позволяют достаточно достоверно оценить локализацию, размеры, состав и глубину инвазии гидатидных кист, что подтверждается патоморфологическим исследованием операционного материала. В случаях рецидива сердечного эхинококкоза показано повторное высокотехнологичное кардиохирургическое лечение в объеме удаления кист.

Список литературы

1. Маликова МС, Фролова ЮВ, Раскин ВВ, и др. Внутрисердечный эхинококкоз. Российский кардиологический журнал.2015;(9):7-10. <https://doi.org/10.15829/1560-4071-2015-9-7-10>
2. Vuitton DA, McManus DP, Rogan MT, et al. International consensus on terminology to be used in the field of echinococcoses. Consensus international sur la terminologie à utiliser dans le domaine des échinococcoses. Parasite.2020;27:41. doi:10.1051/parasite/2020024
3. Сухарева Г.Э. Эхинококкоз сердца – эхинококковая болезнь редкой локализации. Эффективная фармакотерапия.2018;38:10-14.
4. Nasri S, Aichouni N, Lokman S, et al. Cardiac hydatid cyst: 2 case reports. Radiol Case Rep. 2021;16(12):3829-3833. doi: 10.1016/j.radcr.2021.09.013.
5. Shakerian B, Mandegar MH. Huge Hydatid Cyst of the Right Ventricular Outflow Tract. Sultan Qaboos Univ Med J. 2021;21(3):485-487. doi: 10.18295/squmj.4.2021.017.
6. El Boussaadani B, Regragui H, Bouhdadi H, Wazaren H, Ajhoun I, Laaroussi M, Cherti M. Primary cardiac hydatid cyst presenting with massive pericardial effusion: a case report. Egypt Heart J. 2020;72(1):51. doi: 10.1186/s43044-020-00085-x.
7. Procop G. W., Pritt B. Pathology of Infectious Diseases E-Book: A Volume in the Series: Foundations in Diagnostic Pathology. Elsevier Health Sciences, 2014:728p.
8. Noaman H, Rawaf S, Majeed A, Salmasi AM. Hydatid Cyst of the Heart. Angiology. 2017;68(9):765-768. doi: 10.1177/0003319717690093.
9. Charfeddine S, Mallek S, Gueldiche M, et al. A huge cardiac hydatid cyst: An unusual cause of chest pain revealing multivisceral hydatidosis in a young woman. J Saudi Heart Assoc. 2015;27(4):286-91. doi: 10.1016/j.jsha.2015.04.003.
10. Emlik D., Ödev K., Poyraz N. and Kaya H.E. Radiological characteristics of pulmonary hydatid cysts in Current Topics in Echinococcosis red. Alfonso J. Rodriguez-Morales. 2015. DOI: 10.5772/60884
11. Al-Saeedi M, Ramouz A, Khajeh E, et al. Endocystectomy as a conservative surgical treatment for hepatic cystic echinococcosis: A systematic review with single-arm meta-analysis. PLoS Negl Trop Dis. 2021;15(5):e0009365. doi:10.1371/journal.pntd.0009365
12. Brunetti E., Kern P., Vuitton D.A. Expert consensus for the diagnosis and treatment of cystic and alveolar echinococcosis in humans. Acta Tropica.2010;114(1):1-16. <https://doi.org/10.1016/j.>