

Аномалии развития трахеобронхиального дерева (клинический случай)

Е.В. Семичев, Н.Н. Медведева

*Красноярский государственный медицинский университет имени профессора В.Ф. Войно-Ясенецкого
Минздрава России
660022, г. Красноярск, ул. Партизана Железняка, 1*

Резюме

По Международной классификации болезней аномалии трахеобронхиального дерева (ТБД) объединены в класс XVII «Врожденные аномалии (пороки развития), деформации и хромосомные нарушения» (Q30–Q34, а именно Q32.1 – «Другие пороки развития трахеи»). В настоящей работе представлено описание клинического случая врожденной аномалии ТБД. Из пульмонологического отделения для выполнения бронхоскопии с целью дифференциальной диагностики с туберкулезом легких был направлен пациент М. 18 лет с диагнозом: МКБ-10 J90 Плевральный выпот, не классифицированный в других рубриках. При проведении аппарата по трахее в нижней ее трети по направлению к правому главному бронху обнаружено дивертикулообразное выпячивание стенки трахеи с деформацией хрящевого кольца. После осмотра сформировано заключение: аномалия развития нижней трети трахеи (редуцированный трахеальный бронх справа). Аномалии развития ТБД являются крайне редкой патологией, описываемая нами именуется трахеальным бронхом. Трахеальный бронх, редчайший порок развития ТБД с частотой не более 1–2 % наблюдений, является результатом дисонтогенеза, обычно он располагается на правой стороне трахеи и может заканчиваться слепо в виде дивертикула. В представленном нами описании отсутствует иная аномалия ТБД, поэтому ее можно отнести к сверхкомплектному варианту трахеального бронха. При выявлении аномалий развития ТБД необходимо проводить дифференциальную диагностику с дивертикулами трахеи, при которых страдает лишь ее мембранозная часть. **Заключение.** Описываемый нами клинический случай относится к сверхкомплектному варианту трахеального бронха и требует дополнительного использования высокотехнологических методов верификации. Не исключаем, что причиной его развития могли быть факторы окружающей среды г. Железногорска.

Ключевые слова: аномалия развития трахеобронхиального дерева, пороки бронхолегочной системы, аномалии ветвления бронхов, «высокий» правый верхнедолевой бронх, трахеальный бронх.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Автор для переписки: Семичев Е.В., e-mail: evsemichev@yandex.ru

Для цитирования: Семичев Е.В., Медведева Н.Н. Аномалии развития трахеобронхиального дерева (клинический случай). *Сибирский научный медицинский журнал*. 2023;43(4):154–159. doi: 10.18699/SSMJ20230417

Anomalies in the development of the tracheobronchial tree (clinical case)

E.V. Semichev, N.N. Medvedeva

*Professor V.F. Voino-Yasenetsky Krasnoyarsk State Medical University of Minzdrav of Russia
660022, Krasnoyarsk, Partizana Zheleznyaka st., 1*

Abstract

According to the International Classification of Diseases the tracheobronchial tree (TBT) anomalies are grouped into class XVII “Congenital anomalies (malformations), deformities and chromosomal disorders” (Q30–Q34, namely Q32.1 – “Other malformations of the trachea”). This paper presents a clinical case of congenital anomaly of TBT. Patient M., 18 years old, diagnosis of ICD-10 J90 Pleural effusion, not classified elsewhere, was referred from the pulmonology department to perform bronchoscopy for differential diagnosis with pulmonary tuberculosis. When the device was

passed through the trachea, in the lower third towards the right main bronchus, a diverticuloid protrusion of the tracheal wall with deformation of the cartilaginous ring was found. **Results and discussions.** After examination, the conclusion was formed: Anomaly in the development of the lower third of the trachea (reduced tracheal bronchus on the right). Anomalies in the development of TBT are an extremely rare pathology, the pathology we describe is called "tracheal bronchus". The tracheal bronchus, the rarest malformation of TBT with a frequency of no more than 1–2 % of cases, is the result of dysontogenesis. It is usually located on the right side of the trachea and may end blindly in the form of a diverticulum. In our description, there is no other anomaly of the TBT, so it can be attributed to the supernumerary variant of the tracheal bronchus. When anomalies in the development of TBT are detected, it is necessary to carry out differential diagnostics with tracheal diverticula, in which only its membranous part suffers. **Conclusions.** The clinical case we are describing refers to a supernumerary variant of the tracheal bronchus and requires the additional use of high-tech verification methods. We do not exclude that the environmental factors in the city of Zheleznogorsk could be the cause of its development.

Key words: anomaly of the development of the tracheobronchial tree, defects of the bronchopulmonary system, anomalies of branching of the bronchi, "high" right upper lobe bronchus, tracheal bronchus.

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Correspondence author: Semichev E.V., e-mail: evsemichev@yandex.ru

Citation: Semichev E.V., Medvedeva N.N. Anomalies in the development of the tracheobronchial tree (clinical case). *Sibirskij nauchnyj medicinskij zhurnal = Siberian Scientific Medical Journal*. 2023;43(4):154–159. [In Russian]. doi: 10.18699/SSMJ20230417

Введение

Пороки развития трахеобронхиального дерева (ТБД) известны человечеству с незапамятных времен, однако только с середины XX в. они описывались и систематизировались, этому способствовало накопление опыта хирургического лечения заболеваний легких и развития смежных дисциплин (бронхология, лучевая диагностика и др.). Согласно данным литературы, аномалии развития ТБД при эндоскопическом исследовании у взрослых выявляются крайне редко, в 1,58 % случаев на 4000 бронхоскопий [1]. Представители ведущих отечественных пульмонологических школ показали, что удельный вес пороков развития ТБД среди хронических неспецифических заболеваний легких может составлять от 1,4 до 64,6 % [2], другие исследователи указывают частоту их встречаемости в пределах от 0,1 до 0,44 %. Также по литературным данным можно встретить, что врожденные пороки развития регистрируются у 4–6 % новорожденных детей, а среди всех пороков развития на долю врожденных пороков бронхолегочной системы приходится 4,6 % случаев [3].

Согласно МКБ-10, врожденные пороки бронхолегочной системы включены в класс XVII «Врожденные аномалии (пороки развития), деформации и хромосомные нарушения» (Q30–Q34, а именно Q32.1 – «Другие пороки развития трахеи») [3]. Пороки развития органов дыхания представляют собой группу разнообразных патологий, которые могут включать пороки развития ТБД, легочной паренхимы и их сочетания, являясь одной из наиболее сложных диагностических и лечебных проблем современной пульмонологии

и, фтизиатрии и торакальной хирургии [4–6]. Среди специалистов, занимающихся данной проблемой, нет единого взгляда на патогенез аномалий развития органов дыхания, их классификацию, достоверность отдельных диагностических методов, показания к хирургическому лечению, его объемы и сроки проведения, вопросы реабилитации оперированных больных [7, 8].

По нашему мнению, врожденные аномалии развития ТБД в большинстве случаев выявляются в детском возрасте благодаря наличию типичной клинической картины (одышка, цианоз кожных покровов, шумы при auscultation органов грудной клетки, нарушение физического развития и т.д.). Также это могут быть пациенты с частыми заболеваниями органов дыхания, заставляющими их обращаться в лечебные учреждения для обследований. К аналогичному мнению приходят и коллеги из других учреждений, работающие в области пульмонологии [3, 9].

Наш коллектив авторов считает, что рассматривая различные врожденные аномалии, необходимо учитывать эпидемиологию заболеваний, сопоставлять территориальную привязку, поскольку на территории Российской Федерации находится большое количество промышленных городов и Закрытых Административных территориальных образований (ЗАТО), где риск развития врожденных аномалий выше.

Наиболее значимыми вредными факторами, присутствующими в Красноярском крае и ЗАТО г. Железногорска, являются гамма-излучение, радон, природные и техногенные радионуклиды в почвогрунтах, воздухе, продуктах питания и воде (питьевой, воде открытых водоемов), про-

мышленные выбросы г. Красноярска (бензпирен, формальдегиды, оксид углерода, взвешенные вещества, диоксид азота, оксид азота), атмосферное загрязнение химическими веществами (сернистым ангидридом, окислами азота, аммиаком, фенолом, гидрохлоридом ртути, формальдегидом, свинцом в пробах атмосферного воздуха), загрязнение водоносного горизонта (АЗС, свалки технических и бытовых отходов, ливневые стоки, гаражные и садоводческие кооперативы), увеличенное количество предельно допустимого содержания нефтепродуктов, железа, фторидов и пр. [10].

Описание клинического случая

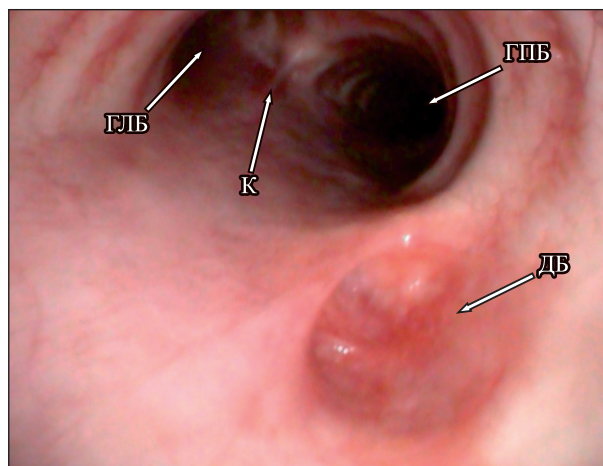
Из пульмонологического отделения ФГБУЗ Клиническая больница № 51 ФМБА России (ЗАТО г. Железнодорожск, Красноярский край) для проведения бронхоскопии в отделение эндоскопии этого же учреждения был направлен пациент М. 18 лет с диагнозом: МКБ-10 J90 Плевральный выпот, не классифицированный в других рубриках. Клиническая картина ограничивалась субфебрильной температурой 37–37,5 °С на протяжении 4 месяцев. Цель бронхоскопии: проведение дифференциальной диагностики с туберкулезом легких, а также взятие бронхоальвеолярного лаважа. При выписке пациента в клиническом диагнозе аномалию развития ТБД не указали.

Бронхоскопию осуществляли под местной анестезией при помощи компрессорного ингалятора CompAir NE-C28 Plus (Omron, Япония), в небулайзерную камеру помещали 3 мл 4%-го лидокаина [11–14]. Пациент находился в классическом горизонтальном положении, осмотр выполняли через рот видеобронхоскопом Pentax EB15-J10 (Видеопроцессор PENTAX EPK-3000 DEFINA). После проведения аппарата по ходу трахеи до кия (carina trachea) в её нижней трети по направлению к правому главному бронху обнаружено дивертикулообразное выпячивание стенки трахеи около 8 мм в диаметре с деформацией хрящевого кольца [15]. На протяжении осмотренного ТБД слизистая оболочка бледно-розовая, чистая, отека не выявлено (рисунок).

После осмотра и описания в заключении было выставлено: аномалия развития нижней трети трахеи (редуцированный трахеальный бронх справа). Анализ литературных данных показал, что аномалии развития ТБД являются крайне редкой патологией, а описание их в литературе имеет очень скудный характер. В основном анализируются аномалии развития у детей, поскольку именно в детском возрасте происходит манифестация клинической картины. Аномалии бронхиальных

ветвлений могут сочетаться и с другими пороками развития легких, и именно на их фоне создаются предпосылки для развития хронических очагов инфекции в легких [16]. Согласно данным литературы, описываемая нами патология именуется трахеальным бронхом, который представляет собой аномальную бронхиальную ветвь, отходящую от грудного отдела трахеи дополнительно к двум главным бронхам. Трахеальный бронх является результатом дизонтогенеза, обычно он располагается на правой стороне трахеи и может заканчиваться слепо в виде дивертикула [17].

У человека наличие такой ветви всегда представляет собой аномалию, хотя у ряда животных, в том числе млекопитающих (овца, свинья), отхождение бронхов от правой стороны грудного отдела трахеи является обычным. В происхождении трахеального бронха основное значение имеет нарушение обычного развития правой верхней бронхиальной почки, а также появление и задержка редукции боковых выростов на правой стенке трахеи – так называемых трахеальных почек. F. Bremer обнаружил их у трех из 80 исследованных человеческих эмбрионов длиной 5–45 мм, в двух случаях одновременно были найдены аномалии развития почек [17]. О частоте трахеального бронха имеются отдельные сведения, осно-



Эндофотограмма ТБД у пациента с аномалией развития, выполненная с применением видеобронхоскопа Pentax EB15-J10 без использования ZOOM-технологий. Представлена нижняя треть трахеи: ГЛБ – главный левый бронх, ГПБ – главный правый бронх, К – киль (carina trachea), ДБ – добавочный бронх

Endophotogram of TBT in a patient with a developmental anomaly, performed using a Pentax EB15-J10 videobronchoscope without the use of ZOOM technologies. The lower third of the trachea is represented: ГЛБ – the main left bronchus, ГПБ – the main right bronchus, К – keel (carina trachea), ДБ – accessory bronchus

ванные главным образом на эндоскопических, бронхографических и операционных данных. Он встречается у 0,2–0,8 % людей, подвергаемых комплексному обследованию органов дыхания или резекции легких. W. Schulte-Brinkmann в 1961 г. опубликовал сводные данные о 38 случаях трахеального бронха, в настоящее время число подобных случаев значительно больше [18]. В литературе описывается два основных варианта трахеального бронха: добавочный (сверхкомплектный) и смещенный (дисплазия). В представленном нами описании отсутствует иная аномалия ТБД, поэтому его можно отнести к сверхкомплектному варианту трахеального бронха.

При выявлении аномалий развития ТБД необходимо проводить дифференциальную диагностику с дивертикулами трахеи и учитывать тот факт, что при аномалии, описанной в данной работе, имеется деформация колец трахеи или бронхов, а при дивертикулах страдает лишь их мембранозная часть. Диагностика таких пороков важна, так как при наличии добавочного бронха или добавочной доли, а также при дивертикуле могут не только развиваться различные патологические процессы с рецидивами [17, 19], но и возникать случаи ятрогении при проведении инвазивных методов исследования (бронхоскопия, интубация трахеи и т.д.). В работе Р.И. Голикова и соавт. представлен подобный случай при интубации у пациента с наличием дивертикула трахеи [20]. Диагностика аномалий развития ТБД сложна и требует применения комплекса современных медицинских диагностических методов [17], в том числе высокотехнологических (компьютерная томография, бронхоскопия, бронхография, ангиография) [2].

Заключение

Описываемый нами клинический случай относится к сверхкомплектному варианту трахеального бронха, имеет роль случайной находки и требует дополнительного использования высокотехнологических методов верификации. Не исключаем, что причиной его развития могло быть действие описанных выше факторов окружающей среды г. Железногорска.

Список литературы

1. Штейнер М.Л. Аномалии трахеи и бронхов у пациентов с выраженным обструктивным синдромом (по данным бронхоскопии). *Туберкулез и болезни легких*. 2014;91(2):34–35.
2. Быков В.П., Леонтьев В.Я. Аномалии легких в условиях Европейского Севера: морфология,

клиника, диагностика и лечение. *Экол. человека*. 2005;(10):3–10.

3. Закиров И.И., Сафина А.И. Врожденные пороки трахеобронхиального дерева у детей. *Вестн. соврем. клин. мед.* 2014;7(6):77–81.

4. Ильина Н.А. Компьютерно-томографическая ангиография как ведущий метод в дифференциальной диагностике редких пороков развития легких у новорожденных. *Регионар. кровообращ. и микроциркуляция*. 2015;14(2):34–40.

5. Филиппов В.П., Лебедев К.М., Ловачева О.В. Гипердиагностика туберкулеза у больных пороками развития легких. *Пробл. туберкулеза*. 1987;65(6):21–24.

6. Черняев А.Л., Матвеев В.Ф., Синопальников А.И. Пороки развития легких у лиц молодого возраста под маской пневмонии. *Пульмонология*. 2003;(1):40–45.

7. Бушмелев В.А., Стерхова Е.В. Врожденные пороки развития легких в структуре хронических заболеваний легких у детей (диагностика и лечение). *Практ. мед.* 2008;(7):74–80.

8. Самородов Н.А., Соколов Е.Г., Сабанчиева Ж.Х., Дешев А.Л. Распространенность врожденных пороков и аномалий развития органов и систем грудной клетки среди взрослого населения Кабардино-Балкарской Республики. *Туберкулез и болезни легких*. 2022;100(8):37–42. doi: 10.21292/2075-1230-2022-100-8-37-42

9. Иевлев В.С., Позднякова М.С., Пушкарев Д.В. Хирургическое лечение пороков развития легких у детей. В кн.: *Труды 12-го Национального конгресса по болезням органов дыхания*. М., 2002. С. 333.

10. Захаринская О.Н., Терещенко Ю.А., Демко И.В. Этиологическая структура и клиническая характеристика профессиональных бронхитов в Красноярском крае. *Сиб. мед. обозрение*. 2015;(1):73–77.

11. Madan K., Biswal S.K., Tiwari P., Mittal S., Hadda V., Mohan A., Khilnani G., Guleria R. Nebulized lignocaine for topical anaesthesia in no-sedation bronchoscopy (NEBULA): A randomized, double blind, placebo-controlled trial. *Lung India*. 2019;36(4):288–294. doi: 10.4103/lungindia.lungindia_348_18

12. Gu W., Xu M., Lu H., Huang Q., Wu J. Nebulized dexmedetomidine-lidocaine inhalation as a premedication for flexible bronchoscopy: a randomized trial. *J. Thorac. Dis.* 2019;11(11):4663. doi: 10.21037/jtd.2019.10.59

13. Dhooria S., Chaudhary S., Ram B., Sehgal I.S., Muthu V., Prasad K.T., Aggarwal A.N., Agarwal R. A randomized trial of nebulized lignocaine, lignocaine spray, or their combination for topical anesthesia during diagnostic flexible bronchoscopy. *Chest*. 2020;157(1):198–204. doi: 10.1016/j.chest.2019.06.018

14. Ho A.T.N., Gandhiraj D., Jamkhana Z., Nayak R., Patolia S. Is additional nebulized lidocaine help-

ful in flexible bronchoscopy?: A meta-analysis. *J. Bronchology Interv. Pulmonol.* 2020;27(4):266–273. doi: 10.1097/LBR.0000000000000656

15. Колесников Л.Л. Международная анатомическая терминология. М.: Медицина, 2003. 424 с.

16. Самаль Т.Н. Пороки развития, наследственные и интерстициальные болезни легких у детей: учеб.-метод. пособие. Минск: БГМУ, 2014. 38 с.

17. Темирбаев А.А. Трахеальный бронх. *Мед. и экол.* 2010;(1):114–116.

18. Перельман М.И. Хирургия трахеи. М.: Медицина, 1972. 220 с.

19. Аверьянов А.В., Кемеж Ю.В. Добавочный трахеальный бронх. *Русский электронный радиологический журнал.* 2013;3(3):62–66.

20. Голиков Р.И., Лебедева М.Н., Первухин С.А., Агеенко А.М. Дивертикул трахеи как причина осложнения оротрахеальной интубации. *Сиб. науч. мед. ж.* 2016;36(6):41–46.

References

1. Shteyner M.L. Tracheal and bronchial abnormalities in patients with severe obstructive syndrome (bronchoscopy data). *Tuberkulez i bolezni legkikh = Tuberculosis and Lung Diseases.* 2014;91(2):34–35. [In Russian].

2. Bykov V.P., Leontiev V.Ya. Lung abnormalities in the European North: morphology, clinic, diagnosis and treatment. *Ekologiya cheloveka = Human Ecology.* 2005;(10):3–10.

3. Zakirov I.I., Safina A.I. Congenital malformations of tracheobronchial tree in children. *Vestnik sovremennoy klinicheskoy meditsiny = Bulletin of Contemporary Clinical Medicine.* 2014;7(6):77–81. [In Russian].

4. Il'ina N.A. Computed tomography angiography as the leading method in the differential diagnosis of rare lung defects in newborns. *Regionarnoye krovoobrashcheniye i mikrotsirkulyatsiya = Regional Blood Circulation and Microcirculation.* 2015;14(2):34–40. [In Russian].

5. Filippov V.P., Lebedev K.M., Lovacheva O.V. Overdiagnosis of tuberculosis in patients with pulmonary malformations. *Problemy tuberkuleza = Problems of Tuberculosis.* 1987;65(6):21–24. [In Russian].

6. Chernyaev A.L., Matveev V.F., Sinopalinikov A.I. Malformations of the lungs in young people disguised as pneumonia. *Pul'monologiya = Pulmonology.* 2003;(1):40–45. [In Russian].

7. Bushmelev V.A., Sterkhova E.V. Congenital malformations of the lungs in the structure of chronic lung diseases in children (diagnosis and treatment). *Prakticheskaya meditsina = Practical Medicine.* 2008;(7):74–80. [In Russian].

8. Samorodov N.A., Sokolovich E.G., Sabanchieva Zh.Kh., Deshev A.L. The prevalence of congenital malformations and anomalies of the chest organs

and systems among adult population of the Kabardino-Balkarian Republic. *Tuberkulez i bolezni legkikh = Tuberculosis and Lung Diseases.* 2022;100(8):37–42. [In Russian]. doi: 10.21292/2075-1230-2022-100-8-37-42

9. Ievlev V.S., Pozdnyakova M.S., Pushkarev D.V. Surgical treatment of pulmonary malformations in children. In: *Proceedings of the 12th National Congress on Respiratory Diseases.* Moscow, 2002. P. 333. [In Russian].

10. Zakharinskaya O.N., Tereshchenko Yu.A., Demko I.V. Etiological structure and clinical characteristics of professional bronchitis in Krasnoyarsk Region. *Sibirskoe meditsinskoe obozrenie = Siberian Medical Review.* 2015;(1):73–77. [In Russian].

11. Madan K., Biswal S.K., Tiwari P., Mittal S., Hadda V., Mohan A., Khilnani G., Guleria R. Nebulized lignocaine for topical anaesthesia in no-sedation bronchoscopy (NEBULA): A randomized, double blind, placebo-controlled trial. *Lung India.* 2019;36(4):288–294. doi: 10.4103/lungindia.lungindia_348_18

12. Gu W., Xu M., Lu H., Huang Q., Wu J. Nebulized dexmedetomidine-lidocaine inhalation as a premedication for flexible bronchoscopy: a randomized trial. *J. Thorac. Dis.* 2019;11(11):4663. doi: 10.21037/jtd.2019.10.59

13. Dhooria S., Chaudhary S., Ram B., Sehgal I.S., Muthu V., Prasad K.T., Aggarwal A.N., Agarwal R. A randomized trial of nebulized lignocaine, lignocaine spray, or their combination for topical anesthesia during diagnostic flexible bronchoscopy. *Chest.* 2020;157(1):198–204. doi: 10.1016/j.chest.2019.06.018

14. Ho A.T.N., Gandhiraj D., Jamkhana Z., Nayak R., Patolia S. Is additional nebulized lidocaine helpful in flexible bronchoscopy?: A meta-analysis. *J. Bronchology Interv. Pulmonol.* 2020;27(4):266–273. doi: 10.1097/LBR.0000000000000656

15. Kolesnikov L.L. International anatomical terminology. Moscow: Medicina, 2003. 424 p. [In Russian].

16. Samal T.N. Malformations, hereditary and interstitial lung diseases in children: Educational and methodological manual. Minsk: BSMU, 2014. 38 p. [In Russian].

17. Temirbaev A.A. Tracheal bronchus. *Meditsina i ekologiya = Medicine and Ecology.* 2010;(1):114–116. [In Russian].

18. Perelman M.I. Tracheal surgery. Moscow: Medicina, 1972. 220 p. [In Russian].

19. Aver'yanov A.V., Kemezh Yu.V. Additional tracheal bronchus. *Russkiy elektronnyy radiologicheskij zhurnal = Russian Electronic Radiological Journal.* 2013;3(3):62–66. [In Russian].

20. Golikov R.I., Lebedeva M.N., Pervukhin S.A., Ageenko A.M. Tracheal diverticulum as a cause of the complications of orotracheal intubation. *Sibirskij nauchnyy medicinskij zhurnal = Siberian Scientific Medical Journal.* 2016;36(6):41–46. [In Russian].

Сведения об авторах:

Семичев Евгений Васильевич, д.м.н., проф., ORCID: 0000-0003-2386-5798, e-mail: evsemichev@yandex.ru
Медведева Надежда Николаевна, д.м.н., проф., ORCID: 0000-0002-7757-6628, e-mail: medvenad@mail.ru

Information about the authors:

Eugeny V. Semichev, doctor of medical sciences, professor, ORCID: 0000-0003-2386-5798, e-mail: evsemichev@yandex.ru
Nadezhda N. Medvedeva, doctor of medical sciences, professor, ORCID: 0000-0002-7757-6628, e-mail: medvenad@mail.ru

Поступила в редакцию 16.03.2023

После доработки 23.04.2023

Принята к публикации 03.05.2023

Received 16.03.2023

Revision received 23.04.2023

Accepted 03.05.2023