

Клинический случай синдрома Горхэма – Стоута

П.Г. Шнякин^{1,2}, В.А. Хоржевский³, И.И. Красицкий², А.В. Трубкин², А.О. Гаврилова¹

¹ Красноярский государственный медицинский университет им. профессора В.Ф. Войно-Ясенецкого Минздрава России

660022, г. Красноярск, ул. Партизана Железняка, 1

² Краевая клиническая больница

660022, г. Красноярск, ул. Партизана Железняка, 3а

³ Красноярское краевое патолого-анатомическое бюро

660022, г. Красноярск, ул. Партизана Железняка, 3д

Резюме

Болезнь исчезающей кости, или синдром Горхэма – Стоута, является заболеванием массивного остеолиза, связанного с разрастанием гемангиозной ткани и приводящего к резорбции кости. **Материал и методы.** В статье представлен редкий клинический случай синдрома Горхэма – Стоута у пациента 19 лет. Заболевание манифестировало в 16 лет с поражения грудных позвонков. **Результаты.** На фоне появления неврологических нарушений из-за сдавления спинного мозга и развития миелопатии пациент первоначально потребовал оперативного лечения на позвоночнике. Диагноз массивного остеолиза выставлен на основании анамнеза, рентгенологических данных и гистологического заключения. В дальнейшем присоединилось множественное поражение ребер, костей таза и черепа. Достаточно редким в данном наблюдении является многоочаговое поражение костей черепа с компрессией мозговых структур. **Заключение.** При дифференциальной диагностике на фоне многофокусной резорбции костей скелета и черепа важно помнить о более редких по сравнению с гематологическими и метастатическими поражениями этиологических причинах, в том числе об идиопатическом остеоллизе.

Ключевые слова: идиопатический остеоллизис, синдром исчезающих костей, костная резорбция, синдром Горхэма – Стоута.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Автор для переписки. Гаврилова А.О., e-mail: anna-gavrilova20@yandex.ru

Для цитирования. Шнякин П.Г., Хоржевский В.А., Красицкий И.И., Трубкин А.В., Гаврилова А.О. Клинический случай синдрома Горхэма – Стоута. *Сиб. науч. мед. ж.* 2025;45(1):184–192. doi: 10.18699/SSMJ20250120

Clinical case of Gorham – Stoa syndrome

P.G. Shnyakin^{1,2}, V.A. Khorzhevsky³, I.I. Krasnitsky², A.V. Trubkin², A.O. Gavrilova¹

¹ Prof. V.F. Voyno-Yasenetsky Krasnoyarsk State Medical University of Minzdrav of Russia

660022, Russia, Krasnoyarsk, Partizana Zheleznyaka st., 1

² Krasnoyarsk Regional Clinical Hospital

660022, Krasnoyarsk, Partizana Zheleznyaka st., 3a

³ Krasnoyarsk Regional Pathological Anatomy Bureau

660022, Krasnoyarsk, Partizana Zheleznyaka st., 3d

Abstract

Disappearing bone disease, or Gorham – Stoa syndrome, is a disease of massive osteolysis associated with the proliferation of hemangioid tissue leading to bone resorption. **Material and methods.** The article presents a rare clinical case of Gorham – Stoa syndrome in a 19-year-old patient. The disease manifested at the age of 16 with a lesion of the thoracic vertebrae. **Results.** Against the background of the appearance of neurological disorders due to compression of the spinal cord and the development of myelopathy, the patient initially required surgical treatment on the spine. The diagnosis of massive osteolysis is based on anamnesis, X-ray data and histological conclusion. Subsequently, multiple

lesions of the ribs, pelvic bones and skull were added. Quite rare in this case is a multi-focal lesion of the skull bones with compression of brain structures. **Conclusions.** In differential diagnosis against the background of multifocal resorption of skeletal and cranial bones, it is important to remember about etiological causes that are rarer than hematological and metastatic lesions, including idiopathic osteolysis.

Key words: idiopathic osteolysis, disappearing bone syndrome, bone resorption, Gorham – Stoat syndrome.

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

Correspondence author. Gavrilova A.O., e-mail: anna-gavrilova20@yandex.ru

Citation. Shnyakin P.G., Khorzhevsky V.A., Krasnitsky I.I., Trubkin A.V., Gavrilova A.O. Clinical case of Gorham – Stoat syndrome. *Sibirskij nauchnyj medicinskij zhurnal = Siberian Scientific Medical Journal*. 2025;45(1):184–192. [In Russian]. doi: 10.18699/SSMJ20250120

Введение

Случаи многофокусного поражения костей скелета периодически встречаются в клинической практике и наиболее часто связаны с гематологическими заболеваниями или метастатическим поражением. Однако имеются и более редкие причины множественного поражения костей, которые менее известны специалистам. Например, идиопатические множественные очаги остеолизиса. Выделяют несколько форм идиопатического остеолизиса: наследственный мультицентральный остеолизис с доминантным типом наследования, наследственный остеолизис с рецессивным типом наследования, ненаследственный мультицентральный остеолизис с нефропатией, синдром Винчестера, синдром Горхэма – Стоута (СГС) [1]. СГС характеризуется образованием мультицентрических остеолитических очагов, связанных с разрастанием гемангиозной ткани (гемангиоматозом), что приводит к резорбции кости [2]. Впервые описан в 1955 г. L.W. Gorham и A.P. Stout, которые назвали его «прогрессивным идиопатическим остеолизисом» [3].

Этиология заболевания неизвестна, но, по мнению ряда исследователей, связана с повышенной активностью остеокластов, а также с нарушениями в лимфангиогенезе [4–7]. Имеются немногочисленные сведения о связи СГС с предшествующей травмой [8]. A. Buerfeind et al. описывают клинический случай развития СГС у мужчины 46 лет, который получил травму, и через 3 недели у него развился остеолизис головки плечевой кости [9]. Болезнь может появиться в любом возрасте и у представителей обоего пола, но несколько чаще возникает у подростков и молодых мужчин [10].

Материал и методы

Ниже представлено собственное клиническое наблюдение СГС у пациента 19 лет, находящегося

на лечении в нейрохирургическом отделении КГБУЗ Краевая клиническая больница г. Красноярска.

Считает себя больным с 2019 г. (на тот момент пациенту было 16 лет), когда отметил появление слабости в левой нижней конечности. При дообследовании по МРТ выявлена опухоль грудных позвонков Th7–Th8 с инвазией в позвоночный канал. По неясным причинам к нейрохирургу не обращался. В 2020 г. развился нижний парапарез и нарушение функции тазовых органов. Госпитализирован в детское нейрохирургическое отделение, где выполнена операция: ламинэктомия Th6–Th8, частичное удаление опухоли, декомпрессия позвоночного канала. В послеоперационном периоде постепенно выросла мышечная сила в ногах (до 4 баллов), восстановилась способность к мочеиспусканию. Гистологическое заключение из ФГБУ «Федеральный научно-клинический центр детской гематологии, онкологии и иммунологии имени Дмитрия Рогачева» Минздрава России: «В пределах исследованного материала данных за неопластический процесс не получено. Рекомендуются повторное исследование при наличии на то клинических показаний. Проведенное иммуногистохимическое (ИГХ) исследование не информативно – не получено ни одного внутреннего контроля. Не исключается использование кислотной декальцинации. Вместе с этим морфологическая картина позволяет подозревать опухоль сосудистого генеза – гемангиома?». Пациент выписался из детского нейрохирургического отделения и на протяжении трех лет чувствовал себя удовлетворительно, при этом контрольных МРТ в динамике не выполнялось. В апреле 2022 г. отметил появление и нарастание под кожей в области лба объемных образований, а также появилась постоянная головная боль. В ноябре 2022 г. осмотрен нейрохирургом во взрослой сети и направлен на госпитализацию для дообследования и лечения.

Результаты

В неврологическом статусе при поступлении: сознание ясное, речь не нарушена. Зрачки D = S, фотореакции живые. Нистагма нет. Чувствительность на лице не изменена. Точки выхода ветвей тройничного нерва безболезненны. Лицо симметрично. Слух сохранен. Глотание, фонация сохранены. Глоточный рефлекс в норме. Язык по средней линии. Мышечная сила в нижних конечностях 4–4,5 балла, сухожильные рефлексы (коленные) оживлены. Поверхностная чувствительность – легкая гипестезия с уровня нижних ребер с обеих сторон. Менингеальных знаков нет.

Выполнено МРТ груднопоясничного отдела позвоночника (рис. 1). Состояние после оперативного лечения от 2020 г.: экстрадурально расположенная опухоль с признаками стеноза позвоночного канала, с распространением на ребра, межреберные пространства.

По данным мультиспиральной компьютерной томографии (МСКТ) головного мозга с контрастом (рис. 2) и МРТ с парамагнетиком (рис. 3) в лобной, теменных и затылочной костях определяются множественные образования округлой формы максимальным диаметром до 4 см и толщиной до 2,5 см с неровными четкими контурами, неоднородной структурой, интенсивно неравномерно накапливающие контрастное вещество. Перифокальный отек костного мозга, инфильтрация твердой мозговой оболочки и апоневроз не визуализируются.

При дообследовании по данным МСКТ грудной клетки выявлены перестройка костной структуры и вздутие XI ребра справа. По данным рентгенографии костей таза в проекции тела подвздошной кости справа прослеживается относительно четко отграниченное остеолитическое поражение ближе к овальной форме с мелкоячеистой структурой, склерозированным краем, раз-

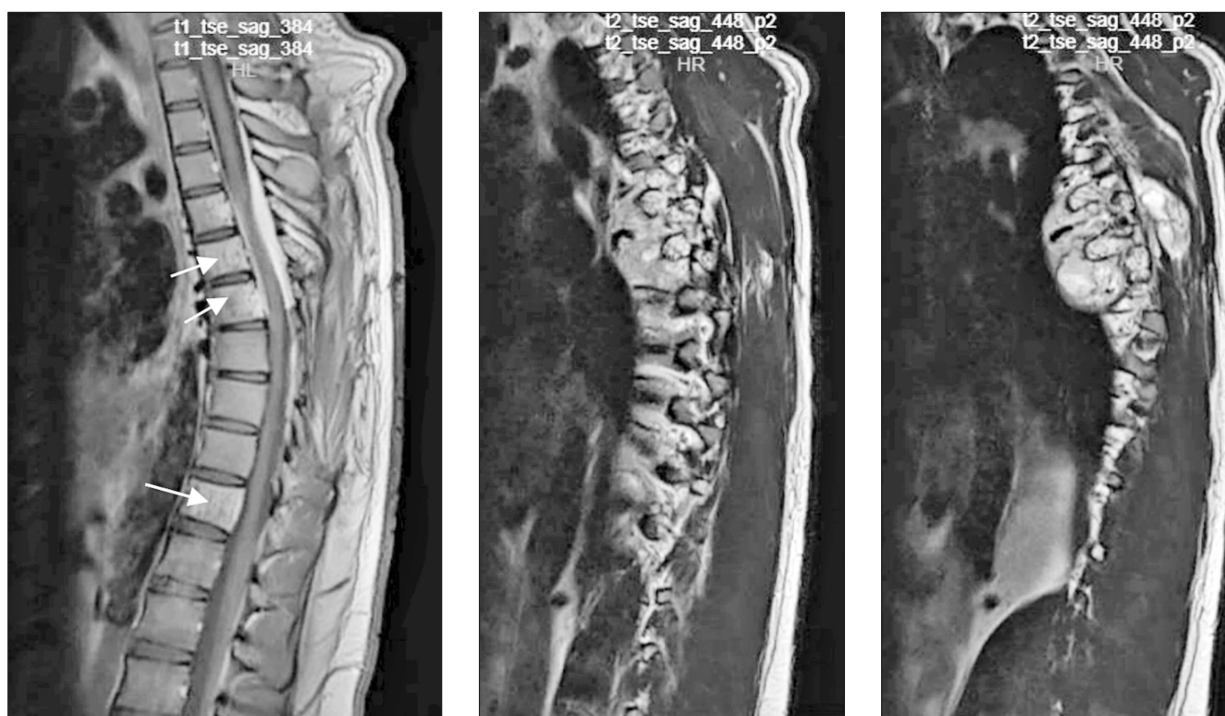


Рис. 1. МРТ грудного и шейного отделов позвоночника пациента К. на уровне позвонков Th5–Th7. Определяется продолженный рост опухолевой ткани, которая инфильтративно поражает тела и отростки позвонков, формирует массивный паравертебральный компонент справа, распространяется в позвоночный канал, муфтообразно охватывает дуральный мешок, умеренно сдавливая спинной мозг. Определяются структурные изменения костного мозга в телах и отростках позвонков Th11, L2, L3 (указаны стрелками)

Fig. 1. MRI of the thoracic and cervical spine of patient K. at the level of Th5–Th7 vertebrae. The continued growth of tumor tissue is determined, which infiltratively affects the bodies and processes of the vertebrae, forms a massive paravertebral component on the right, spreads into the spinal canal, muff-like covers the dural sac, moderately squeezing the spinal cord. Structural changes of the bone marrow in the bodies and processes of the vertebrae Th11, L2, L3 are determined (indicated by arrows)

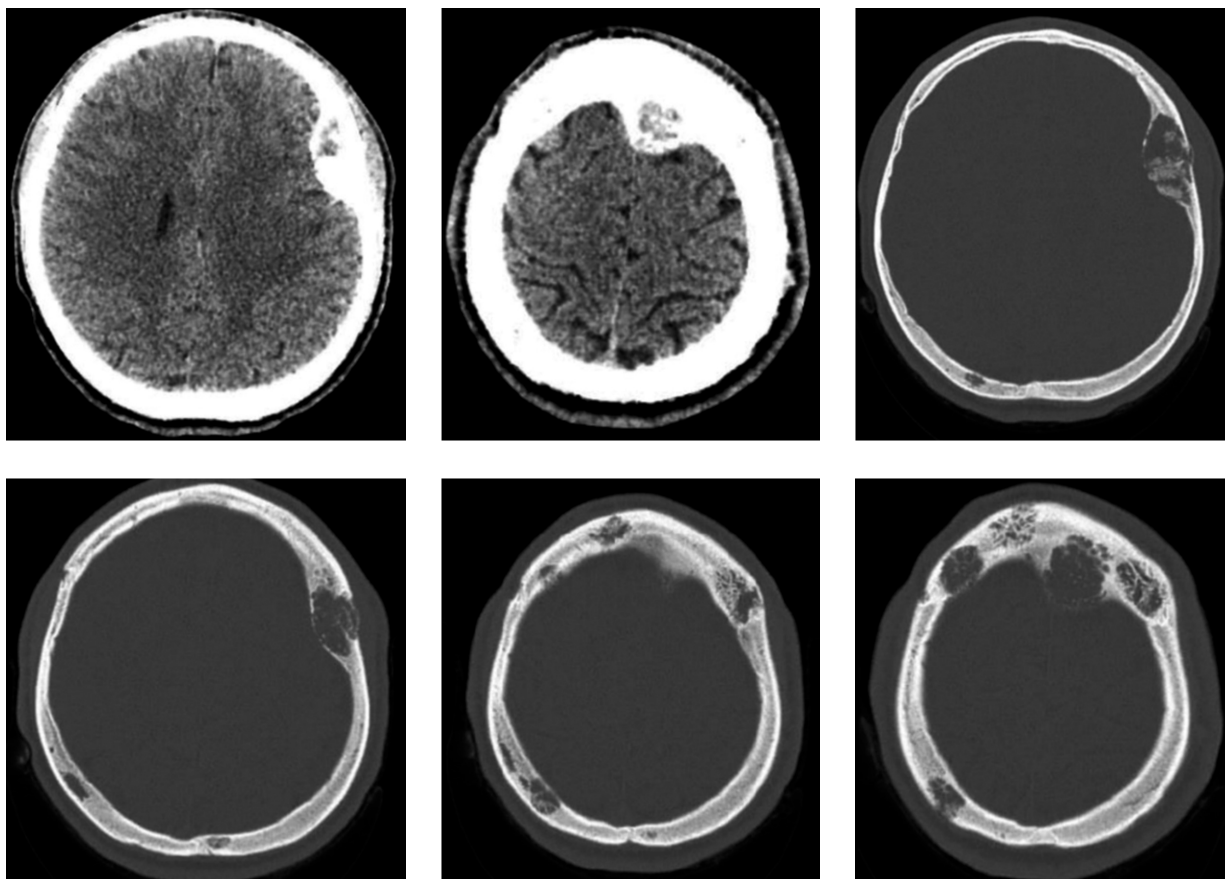


Рис. 2. МСКТ головного мозга пациента К.
Fig. 2. MSCT of the brain of patient K.

мерами $\sim 3,5 \times 4,1$ см (рис. 4). Других поражений костей скелета, в том числе верхних конечностей, не выявлено.

В связи с множественным характером поражения костей заподозрено гематологическое заболевание (плазмноклеточная миелома?). После осмотра гематолога рекомендована стеральная пункция, по данным которой в миелограмме плазматических клеток не обнаружено. В гемограмме и биохимическом профиле показатели в пределах референсных значений. Рекомендовано дообследование в объеме проведения трепанобиопсии. По результатам трепанобиопсии: морфологически, в пределах присланного для исследования материала, нет данных за поражение костного мозга опухолью. Дополнительно получены результаты иммунохроматографического анализа – в сыворотке крови парапротеина не обнаружено. Содержание в моче общего белка $0,097$ г/сут (норма), белок Бенс – Джонса отсутствует.

Учитывая наличие объемного образования теменной кости слева с признаками объемного воздействия на головной мозг, принято решение

об удалении образования с решением о дальнейшей тактике ведения по данным гистологического заключения. Интраоперационно определяется опухоль крупнотрабекулярной костной структуры, интенсивно кровоснабжающаяся (кровопотеря 300 мл). Опухоль удалена в пределах неизмененной кости. Твердая мозговая оболочка не поражена. По данным гистологического исследования: фрагменты костной ткани, где определяется деструктивный рост опухоли, образованной плотными пролифератами сосудов капиллярного типа, распространяющимися по костномозговым лакунам. Сосуды имеют мелкий калибр, выстланы пыльным эндотелием с формированием на отдельных участках папиллярных пролифератов. Митозы и некрозы не определяются. По данным ИГХ-исследования: морфологическая картина соответствует гемангиоме с внутрикостным ростом. Принимая во внимание множественное поражение костей различных локализаций, диагностическая ситуация с высокой степенью вероятности расценивается как ангиоматоз. Не исключается синдром Горхема – Стоута (рис. 5).

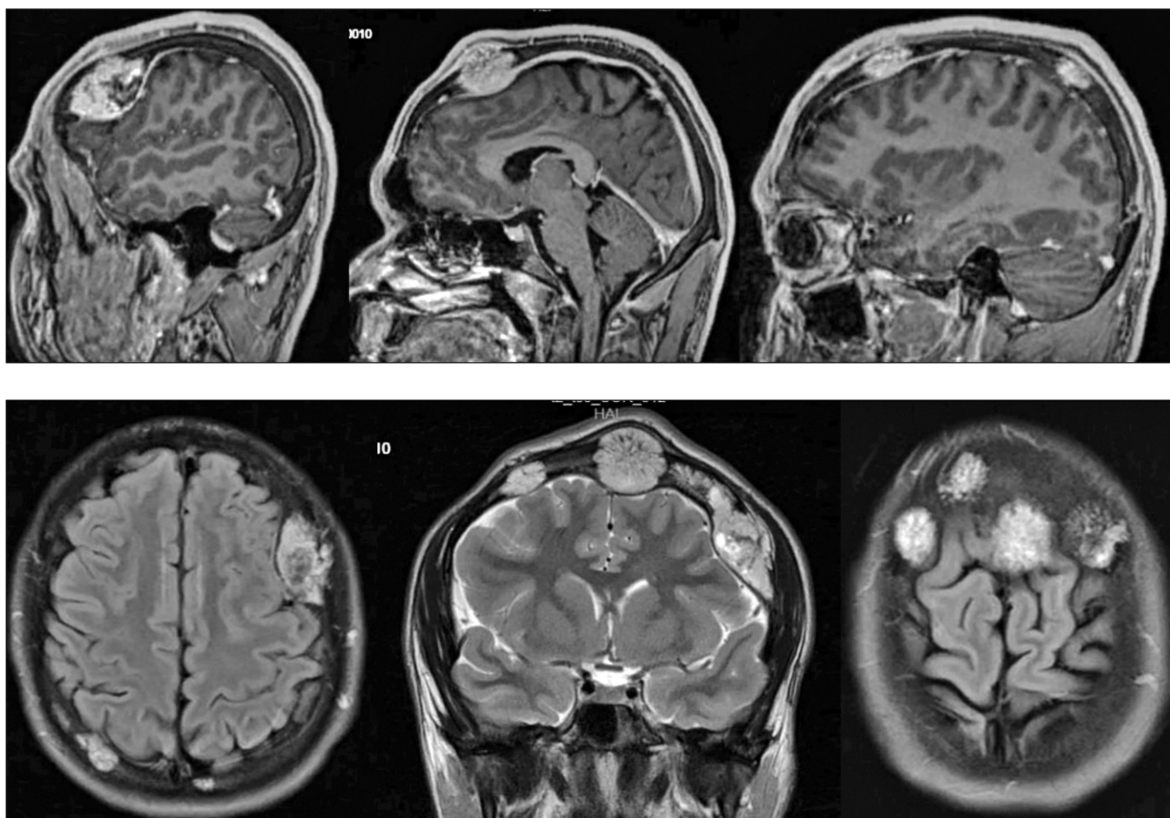


Рис. 3. МРТ головного мозга пациента К. В лобной, теменных и затылочной костях определяются множественные округлой формы образования максимальным диаметром до 4 см и толщиной до 2,5 см с неровными четкими контурами, неоднородной структурой, интенсивно неравномерно накапливающие контрастное вещество

Fig. 3. MRI of the brain of patient K. In the frontal, parietal and occipital bones, multiple rounded formations with a maximum diameter of up to 4 cm and a thickness of up to 2.5 cm with uneven clear contours, heterogeneous structure, intensively unevenly accumulating contrast medium are determined

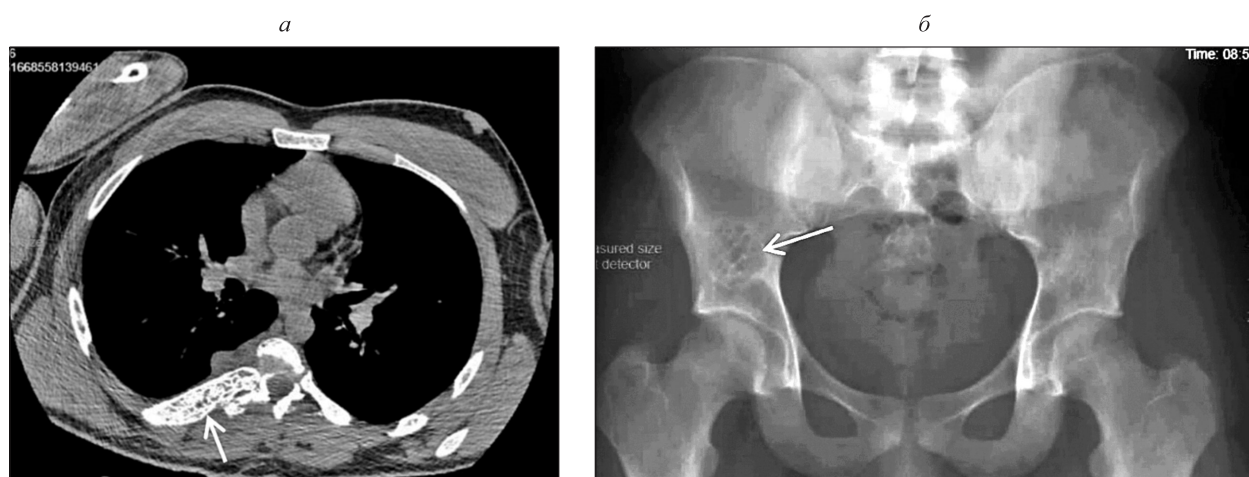


Рис. 4. МСКТ грудной клетки (а) и рентгенография костей таза (б). Стрелками отмечены очаги поражения костей

Fig. 4. Chest MSCT (a) and pelvic bone radiography (b). The arrows mark the lesions of the bones

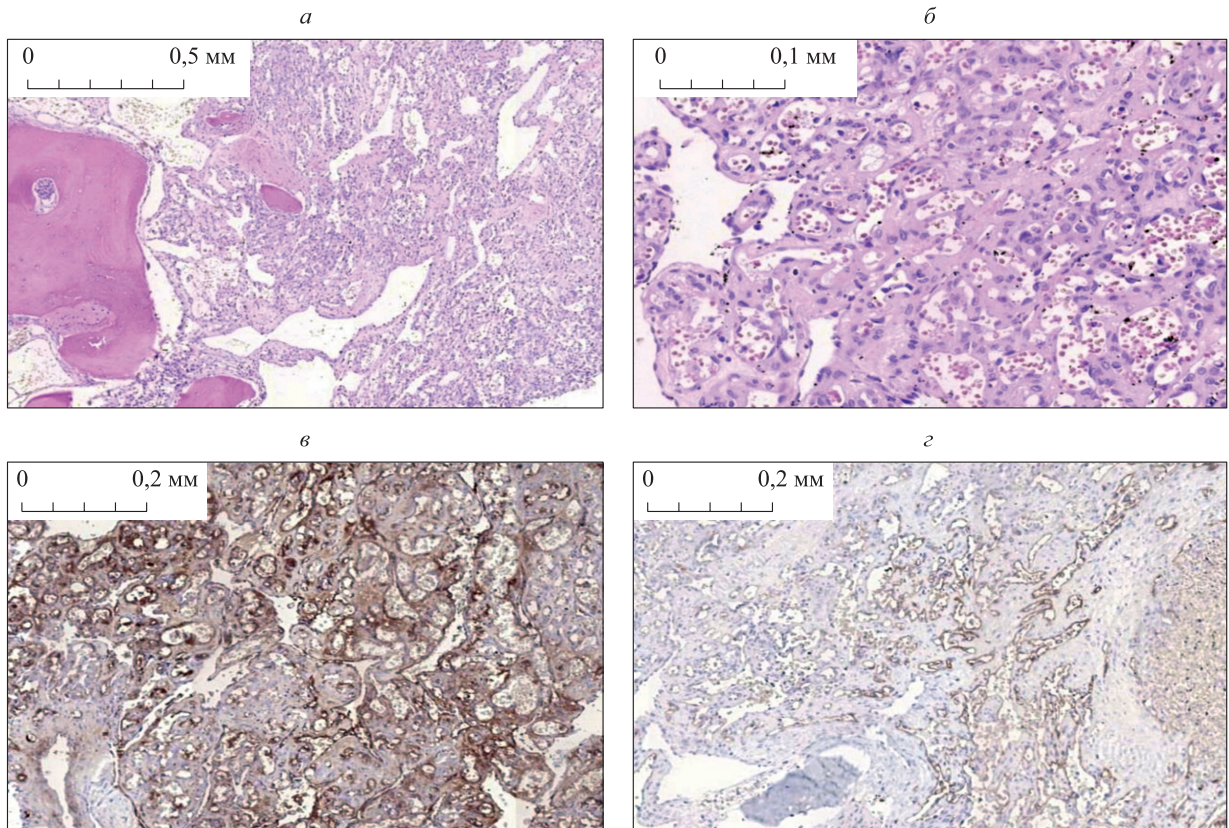


Рис. 5. Морфологическая картина в зоне опухолевого роста: а – определяются фрагменты костной ткани с деструктивным ростом опухоли, образованной плотными пролифератами сосудов капиллярного типа, распространяющимися по костномозговому лакунам; б – сосуды имеют мелкий калибр, выстланы пыльным эндотелием с формированием на отдельных участках папиллярных пролифератов, в просвете сосудов определяются эритроциты; в – эндотелиоциты, выстилающие сосудистые структуры, экспрессируют vWF; г – экспрессия эндотелием сосудов опухоли CD34. Окраска: а, б – гематоксилином и эозином; в, г – ИГХ-исследование с антителами к vWF и CD34 соответственно. Увеличение: а – $\times 100$; б – $\times 400$; в, г – $\times 200$

Fig. 5. Morphological picture in the area of tumor growth: а – bone fragments with destructive tumor growth formed by dense capillary-type vascular proliferations spreading through bone marrow lacunae are determined; б – vessels are of small caliber, lined with lush endothelium with the formation of papillary proliferates in certain areas, erythrocytes are detected in the lumen of the vessels; в – endotheliocytes lining vascular structures express vWF; г – expression of CD34 tumor vascular endothelium. Staining: а, б – hematoxylin and eosin; в, г – immunohistochemical study with anti-vWF and anti-CD34 antibodies, respectively. Magnification: а – $\times 100$; б – $\times 400$; в, г – $\times 200$

Планировалось направление пациента в федеральную клинику для дальнейшего лечения, однако совместно с родителями он принял решение покинуть клинику, не дожидаясь рекомендаций. В дальнейшем на связь не выходили, поэтому судьба пациента неизвестна.

Обсуждение

Как и представленный нами клинический случай, большинство опубликованных наблюдений СГС касается детей и молодых людей. Редко СГС развивается в пожилом возрасте. P.Y. Hong et al. описывают случай СГС у мужчины 67 лет, у

которого выявлено поражение костей черепа, нескольких позвонков, ребер, обеих лопаток и таза [11]. В одной из самых больших серий наблюдений СГС (67 пациентов) мужчин было 64,2 %, женщин – 35,8 %, средний возраст составил 28 лет (от 1,5 лет до 71 года) [8].

Ангиоматоз и остеолитиз, развивающиеся у пациентов с синдромом Горхэма – Стоута, могут вовлекать одну или нескольких костей разных областей скелета. По данным авторов, описавших этот синдром, чаще всего наблюдаются поражения костей плечевого и тазового поясов, черепа, нижней челюсти [3]. Согласно D.N. Kiran et al., наибольшее количество публикаций про СГС

связано с поражением челюстно-лицевой области и верхней конечности [12], однако по данным анализа 67 наблюдений СГС в Китае наиболее часто была затронута бедренная кость. Поражение более трех костей встречалось в 25,4 % случаев [8].

K.N. Schneider et al. описывают случай СГС у молодой женщины с изолированным лизисом участка подвздошной кости [2]. S.Z. Liu et al. опубликовали наблюдение СГС у пациентки 29 лет с очагами деструкции в позвоночнике, ребрах и ключице [13]. Т. Aizawa et al. представили случай СГС у мальчика 10 лет с поражением позвоночника от Th3- до Th12-позвонка [14], Э.Н. Оттева и соавт. – у пациента 18 лет с множественными переломами ребер левой половины грудной клетки и переломами поперечных отростков грудных позвонков [15]. Многими авторами отмечено, что поражение позвонков и ребер часто осложняется развитием хилоторакса [11, 15–17].

Представленный нами клинический случай интересен тем, что вовлечено множество различных костей скелета, а также имеется множественное поражение костей черепа, два очага из которых вызывают масс-эффект и компрессию подлежащей твердой мозговой оболочки и головного мозга. Такое выраженное поражение черепа достаточно необычно и не описано в литературе. По данным Н. Di et al., первым проявлением СГС в ряде случаев являются стойкие серозиты, в том числе плевриты [18]. В нашем наблюдении, несмотря на вовлечение в патологический процесс нескольких позвонков, паравертебральных структур и ребер, плеврального выпота не отмечалось.

Основные жалобы при СГС представлены левым синдромом, отеком конечностей, а также развитием осложнений на фоне костной деструкции, в том числе патологических переломов [8, 10]. Представленный нами клинический случай интересен тем, что первично у пациента появились неврологические нарушения из-за развития миелопатии на фоне поражения грудных позвонков и сдавления спинного мозга. Для дифференциальной диагностики СГС от других состояний и заболеваний помогает тот факт, что биохимические и гематологические показатели находятся в пределах нормы [15], редко может отмечаться небольшое повышение активности щелочной фосфатазы [8, 10]. В нашем клиническом случае все биохимические и гематологические показатели у пациента были в пределах нормы.

По данным литературы, при гистологическом исследовании при СГС определяется гиперпролиферация мелких сосудов [19, 20]. При этом еще в 1983 г. L. Neffez et al. выделили следующие критерии диагностики СГС: наличие ангиоматозной ткани при биопсии, отсутствие клеточной атипии, минимальная реакция остеокластов

или ее отсутствие, признаки прогрессирующей резорбции кости, неязвенное поражение, отсутствие поражений внутренних органов, рентгенологическая картина остеолитического, отсутствие наследственных, метаболических, опухолевых и инфекционных процессов [21]. При СГС могут развиваться осложнения, требующие хирургического лечения; так, S. Liu et al. описывают случай успешной цементной вертебропластики пораженного пятого поясничного позвонка у молодого мужчины [17]. В представленном нами клиническом случае пациент первично потребовал оперативного лечения на позвоночнике в связи с тем, что отмечалось сдавление спинного мозга и развивалась миелопатия.

В настоящее время основной формой лечения СГС является назначение препаратов на основе бисфосфонатов, что приводит к стабилизации состояния и прекращению процессов остеолитического, однако чаще это происходит не ранее чем через 1–2 года [2, 10, 13, 22, 23]. Также имеет эффективность назначение витамина D и интерферона α -2b [10], в некоторых случаях применяется радиотерапия [8, 10]. К сожалению, в нашем наблюдении пациент отказался от дальнейшего наблюдения и направления в федеральную клинику для получения специфической терапии. Прогноз при СГС достаточно непредсказуем. Отмечаются случаи самостоятельного прекращения остеолитического. Считается, что неблагоприятными прогностическими факторами является поражение позвоночника и костей грудной клетки с развитием хилоторакса [10, 11, 18, 22].

Заключение

Многофокусное поражение костей скелета и черепа в первую очередь наводит на мысль о миеломной болезни и метастатическом поражении. Однако возможны и другие, более редкие причины. При наличии множественных очагов поражения костей скелета у молодых пациентов необходимо помнить об идиопатическом остеолитическом, одной из форм которого является синдром Горхэма – Стоута, характеризующийся очагами костной деструкции на фоне пролиферации сосудов капиллярного типа (гемангиоматоза). В силу редкости заболевания его прогноз достоверно не известен. Нередко костная деструкция при СГС вызывает осложнения, требующие хирургического вмешательства. В ряде случаев процесс остеолитического заканчивается спонтанно через несколько лет. Тем не менее все пациенты с установленным диагнозом СГС должны получать лекарственные препараты на основе бисфосфонатов, что доказанно приводит к стабилизации состояния и прекращению процессов остеолитического.

Список литературы/ References

1. Hardegger F., Simpson L.A., Segmueller G. The syndrome of idiopathic osteolysis. Classification, review, and case report. *J. Bone Joint Surg. Br.* 1985;67(1):88–93. doi: 10.1302/0301-620X.67B1.3968152
2. Schneider K.N., Gosheger G., Andreou D. Gorham–Stout syndrome. *Dtsch. Arztebl. Int.* 2019;116(29–30):507. doi: 10.3238/arztebl.2019.0507a
3. Gorham L.W., Stout A.P. Massive osteolysis (acute spontaneous absorption of bone, phantom bone, disappearing bone); its relation to hemangiomatosis. *J. Bone Joint Surg. Am.* 1955;37-A(5):985–1004
4. Hirayama T., Sabokbar A., Itonaga I., Watt-Smith S., Athanasou N.A. Cellular and humoral mechanisms of osteoclast formation and bone resorption in Gorham – Stout disease. *J. Pathol.* 2001;195(5):624–630. doi: 10.1002/path.989
5. Colucci S., Tarabozetti G., Primo L., Viale A., Roca C., Valdembrì D., Geuna M., Pagano M., Grano M., Pogrel A.M., ... Bussolino F. Gorham – Stout syndrome: a monocyte-mediated cytokine propelled disease. *J. Bone Miner. Res.* 2006;21(2):207–218. doi: 10.1359/JBMR.051019
6. Hagendoorn J., Padera T.P., Yock T.I., Nielsen G.P., di Tomaso E., Duda D.G., Delaney T.F., Gaissert H.A., Pearce J., Rosenberg A.E., Jain R.K., Ebb D.H. Platelet-derived growth factor receptor-beta in Gorham's disease. *Nat. Clin. Pract. Oncol.* 2006;3(12):693–697. doi: 10.1038/ncponc0660
7. Radhakrishnan K., Rockson S.G. Gorham's disease: an osseous disease of lymphangiogenesis? *Ann. NY Acad. Sci.* 2008;1131:203–205. doi: 10.1196/annals.1413.022
8. Hu P., Yuan X.G., Hu X.Y., Shen F.R., Wang J.A. Gorham – Stout syndrome in mainland China: a case series of 67 patients and review of the literature. *J. Zhejiang Univ. Sci. B.* 2013;14(8):729–735. doi: 10.1631/jzus.B1200308
9. Buerfeind A., Bürger H., Schlüter-Brust K., Eysel P., Delank K.S. Gorham – Stout syndrome (GSS) with fulminant aseptic osteonecrosis of the shoulder. *Orthopade.* 2010;39(10):1003–1008. doi: 10.1007/s00132-010-1638-9
10. Nikolaou V.S., Chytas D., Korres D., Efsthathopoulos N. Vanishing bone disease (Gorham – Stout syndrome): A review of a rare entity. *World J. Orthop.* 2014;5(5):694–698. doi: 10.5312/wjo.v5.i5.694
11. Hong P.Y., Zhang X.B., Zeng H.Q., Zhao Y.L., Huang M.H. Gorham – Stout syndrome: A chylothorax disease with bony destruction: A case report. *Medicine (Baltimore).* 2022;101(50):e32105. doi: 10.1097/MD.00000000000032105
12. Kiran D.N., Anupama A. Vanishing bone disease: a review. *J. Oral Maxillofac. Surg.* 2011;69(1):199–203. doi: 10.1016/j.joms.2010.05.088
13. Liu S.Z., Zhou X., Song A., Wang Y.P., Liu Y. Gorham – Stout syndrome. *QJM.* 2018;111(12):911–912. doi: 10.1093/qjmed/hcy150
14. Aizawa T., Sato T., Kokubun S. Gorham disease of the spine: a case report and treatment strategies for this enigmatic bone disease. *Tohoku J. Exp. Med.* 2005;205(2):187–196. doi: 10.1620/tjem.205.187
15. Оттева Э.Н., Кочерова Т.Ю., Шепичев Е.В. Синдром Горхэма – Стоута: описание случая. *Научно-практ. ревматол.* 2010;48(4):83–86. doi: 10.14412/1995-4484-2010-1171
16. Otteva E.N., Kocherova T.Yu., Shepichev E.V. Gorham – Stout syndrome: description of a case. *Nauchno-prakticheskaya revmatologiya = Rheumatology Science and Practice.* 2010;48(4):83–86. [In Russian]. doi: 10.14412/1995-4484-2010-1171
17. Kose M., Pekcan S., Dogru D., Akyuz C., Ozcelik U., Ozsurekci Y., Gulhan B., Demircin M., Kiper N. Gorham – Stout syndrome with chylothorax: successful remission by interferon alpha-2b. *Pediatr. Pulmonol.* 2009;44(6):613–615. doi: 10.1002/ppul.20849
18. Liu S., Zhou X., Song A., Kong X., Wang Y., Liu Y. Successful treatment of Gorham – Stout syndrome in the spine by vertebroplasty with cement augmentation: A case report and literature review. *Medicine (Baltimore).* 2018;97(29):e11555. doi: 10.1097/MD.00000000000011555
19. Di H., Zhang B., Xu N., Yin Y., Han X., Zhang Y., Zeng X. Refractory serositis in Gorham – Stout syndrome. *Orphanet J. Rare Dis.* 2022;17(1):152. doi: 10.1186/s13023-022-02307-8
20. Bruch-Gerharz D., Gerharz C. D., Stege H., Krutmann J., Pohl M., Koester R., Ruzicka T. Cutaneous lymphatic malformations in disappearing bone (Gorham – Stout) disease: a novel clue to the pathogenesis of a rare syndrome. *J. Am. Acad. Dermatol.* 2007;56(2 Suppl):21–25. doi: 10.1016/j.jaad.2006.01.063
21. Boyer P., Bourgeois P., Boyer O., Catonné Y., Saillant G. Massive Gorham – Stout syndrome of the pelvis. *Clin. Rheumatol.* 2005;24(5):551–555. doi: 10.1007/s10067-005-1088-7
22. Heffez L., Doku H.C., Carter B.L., Feeney J.E. Perspectives on massive osteolysis. Report of a case and review of the literature. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.* 1983;55(4):331–343. doi: 10.1016/0030-4220(83)90185-8
23. Kuriyama D.K., McElligott S.C., Glaser D.W., Thompson K.S. Treatment of Gorham – Stout disease with zoledronic acid and interferon-α: a case report and literature review. *J. Pediatr. Hematol. Oncol.* 2010;32(8):579–584. doi: 10.1097/MPH.0b013e3181edb464
24. Elera-Fitzcarrald C., Ugarte-Gil M.F. Gorham–Stout syndrome: A phantom bone disease treated with bisphosphonates. *J. Clin. Rheumatol.* 2020;26(5):e135–e136. doi: 10.1097/RHU.0000000000001009

Сведения об авторах:

Шнякин Павел Геннадьевич, д.м.н., проф., ORCID: 0000-0001-6321-4557, e-mail: shnyakinpavel@mail.ru
Хоржевский Владимир Алексеевич, к.м.н., ORCID: 0000-0002-9196-7246, e-mail: vladpatholog@yandex.ru
Красицкий Игорь Иванович, ORCID: 0009-0006-5082-8369, e-mail: kras.ii@mail.ru
Трубкин Алексей Валерьевич, ORCID: 0000-0003-0449-1823, e-mail: turatium@gmail.com
Гаврилова Анна Олеговна, ORCID: 0009-0000-4511-5774, e-mail: anna-gavrilova20@yandex.ru

Information about the authors:

Pavel G. Shnyakin, doctor of medical sciences, professor, ORCID: 0000-0001-6321-4557, e-mail: shnyakinpavel@mail.ru
Vladimir A. Khorzhevsky, candidate of medical sciences, ORCID: 0000-0002-9196-7246, e-mail: vladpatholog@yandex.ru
Igor I. Krasnitsky, ORCID: 0009-0006-5082-8369, e-mail: kras.ii@mail.ru
Aleksey V. Trubkin, ORCID: 0000-0003-0449-1823, e-mail: turatium@gmail.com
Anna O. Gavrilova, ORCID: 0009-0000-4511-5774, e-mail: anna-gavrilova20@yandex.ru

Поступила в редакцию 30.08.2024

После доработки 25.10.2024

Принята к публикации 28.12.2024

Received 30.08.2024

Revision received 25.10.2024

Accepted 28.12.2024