СЛУЧАЙ ИЗ КЛИНИЧЕСКОЙ ПРАКТИКИ CASE REPORTS

DOI: 10.21294/1814-4861-2025-24-1-164-173

УДК: 616.231-006.33.04



Для цитирования: *Тер-Ованесов М.Д., Аксарин А.А., Копейка С.М.* Клиническое наблюдение хондросаркомы трахеи. Сибирский онкологический журнал. 2025; 24(1): 164–173. – doi: 10.21294/1814-4861-2025-24-1-164-173

For citation: *Ter-Ovanesov M.D., Aksarin A.A., Kopeyka S.M.* A case of tracheal chondrosarcoma. Siberian Journal of Oncology. 2025; 24(1): 164–173. – doi: 10.21294/1814-4861-2025-24-1-164-173

КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ ХОНДРОСАРКОМЫ ТРАХЕИ

М.Д. Тер-Ованесов^{1,2}, А.А. Аксарин^{3,4}, С.М. Копейка³

¹ФГБОУ ВО «Российский университет медицины» Минздрава России

Россия, 127994, г. Москва, Рахмановский пер., 3

²ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр онкологии им. Н.Н. Блохина»

Минздрава России

Россия, 115522, г. Москва, Каширское шоссе, 23

³БУ «Сургутская окружная клиническая больница»

Россия, 628408, г. Сургут, ул. Энергетиков, 24/2

⁴БУ ВО ХМАО-Югры «Сургутский государственный университет»

Россия, 628412, г. Сургут, пр. Ленина, 1

Аннотация

Актуальность. Хондросаркома трахеи является крайне редкой злокачественной опухолью, составляющей лишь 0,1 % от опухолей данной локализации. Считается, что хондросаркома (ХС) возникает из злокачественной дегенерации в мезенхимальных плюрипотентных клетках хрящевой ткани, оссифицированных хрящах, а также в энхондромах. Хондросаркома трахеи является наименее изученной опухолью данной морфологической группы. С 1959 по 2020 г. в литературе описано лишь 35 наблюдений. Это определяет то, что золотым стандартом в лечении является хирургический метод с выполнением радикального вмешательства R0. Средний возраст пациентов на момент диагностики составлял 68 лет, и в абсолютном большинстве они были представлены мужчинами – 91 %. Наиболее частыми симптомами при первичном обращении были одышка (до 80 % наблюдений). Среди ХС трахеи превалируют опухоли, локализованные в проксимальной трети, - 54 %, тогда как опухоли дистальной трети составляют 29 %. Преобладают случаи опухолей низкой степени злокачественности G1 – 54 %. Золотым стандартом в диагностике опухолей трахеи является компьютерная томография органов грудной клетки (ОГК). Цель исследования – демонстрация успешного клинического случая лечения хондросаркомы трахеи. Описание клинического случая. У пациента, 67 лет, диагностирована опухоль трахеи. Оперативное лечение выполнено 04.07.22 в объеме циркулярной резекции 2, 3 и 4-го колец трахеи с лимфодиссекцией регионарных паратрахеальных лимфоузлов, R0. Послеоперационный период протекал без осложнений. Адъювантная терапия не проводилась. При контрольном исследовании через 2 года трахеальный анастомоз свободно проходим. Заключение. На данный момент золотым стандартом в радикальном лечении ХС трахеи являются открытые хирургические вмешательства с выполнением циркулярной резекции трахеи R0 и формированием анастомоза трахеи конец в конец – подобный подход был выполнен в 77 % наблюдений, причем в данной группе при среднем периоде наблюдения более 30 мес частота рецидива составила лишь 6 %. Адъювантная химиотерапия не применялась ни в одном наблюдении, что обусловлено крайне низкой чувствительностью опухоли к химиопрепаратам.

Ключевые слова: хондросаркома трахеи, хирургическое лечение, резекция трахеи, системный обзор.

A CASE OF TRACHEAL CHONDROSARCOMA

M.D. Ter-Ovanesov^{1,2}, A.A. Aksarin^{3,4}, S.M. Kopeyka³

¹Russian University of Medicine of the Ministry of Health of Russia

3, Rakhmanovsky per., Moscow, 127994, Russia

²N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology of the Ministry of Health of Russia

23, Kashirskove Shosse, Moscow, 115522, Russia

3Surgut Regional Clinical Hospital

24/2, Energetikov St., Surgut, 628408, Russia

⁴Surgut State University

1, Lenin Ave., Surgut, 628412, Russia

Abstract

Background. Chondrosarcoma of the trachea is an extremely rare malignant tumor, accounting for only 0.1 % of all tracheal tumors. It is believed that chondrosarcoma arises from malignant degeneration in mesenchymal pluripotent cells of cartilage tissue, ossified cartilage, and enchondromas. Chondrosarcoma of the trachea is the least-studied tumor, with only 35 cases described in the literature from 1959 to 2020. Surgery with R0 resection remains the gold standard treatment of tracheal chondrosarcoma. The median age of patients at the time of diagnosis was 68 years, and 91 % were male. The most common symptoms at the initial visit were dyspnea (up to 80 % of cases). Tumors located in the proximal third of the trachea were observed in 54 % of cases, while tumors in the distal third of the trachea were found in 29 % of cases. Low-grade tumors (G1) were the most common (54 %). Computed tomography of the chest is considered the gold standard for the detection of tracheal tumors. Purpose: to demonstrate a successful case of treatment of tracheal chondrosarcoma. Case presentation. A 67-year-old male patient was diagnosed with a tracheal tumor. On 04.07.2022, surgical treatment was performed: circular resection of the 2nd, 3rd, and 4th tracheal rings with lymph node dissection of the regional paratracheal lymph nodes R0. The postoperative period was uneventful. Adjuvant therapy was not given. At the 2-year follow-up, no anastomotic complications were reported. Conclusion. To date, circular resection of the trachea (R0) with end-to-end tracheal anastomosis is the gold standard for treating tracheal chondrosarcoma. This approach was performed in 77 % of cases with the median follow-up time of more than 30 months and relapse rate of only 6 %. It should be noted that adjuvant chemotherapy was not used in these cases due to the extremely low sensitivity of the tumor to chemotherapy drugs.

Key words: tracheal chondrosarcoma, surgical treatment, tracheal resection, systematic review.

Хондросаркома (ХС) трахеи является крайне редкой злокачественной опухолью, составляющей лишь 0,1 % от опухолей данной локализации. Наиболее часто XC развиваются из хрящевой ткани крупных трубчатых костей. Среди опухолей головы и шеи XC также является достаточно редкой, составляя также лишь 0,1 %. Наиболее часто опухоли этой локализации возникают из хрящевой ткани лица и параназальных синусов, значительно реже возникая из хрящевых структур гортани или мягких тканей парафарингеальной области. Так как доказательных обоснований туморогенеза в настоящее время не представлено, считается, что ХС возникает из злокачественной дегенерации в мезенхимальных плюрипотентных клетках хрящевой ткани, оссифицированных хрящах, а также в энхондромах [1–5]. Описано несколько синдромов, ассоциированных с высокой частотой развития ХС, включая синдром Маффуцы (Maffucci syndrome) [6, 7] – заболевание, сопровождающееся развитием доброкачественных множественных энхондром, преимущественно в костях конечностей (ладони и стопы, но могут поражаться и более крупные трубчатые кости), а также структурными изменениями

в мягких тканях кожи с развитием гемангиом и лимфангиом. Следует отметить, что данный синдром увеличивает риск развития рака яичников и печени. Патогенетическим фактором развития данного синдрома является появление мутации в генах IDH1 и IDH2 в соматических клетках, определяя ненаследственный характер патологии.

Хондросаркома трахеи является наименее изученной опухолью данной морфологической группы, причем в доступной литературе за период с 1959 по 2020 г. представлено описание лишь 35 случаев, наиболее часто в виде отдельных клинических примеров [8–13]. Это определяет то, что доказательных алгоритмов лечения этой опухоли не существует, а золотым стандартом является хирургический метод с выполнением радикального вмешательства R0. Подходы к комбинированному лечению являются спорадическими и также требуют дальнейшего клинического изучения. В настоящем обзоре мы исключили данные пациентов с XC гортани, легких и крупных бронхов.

Клинический случай

Больной П., 67 лет, обратился на консультацию к онкологу в Сургутскую окружную клиническую

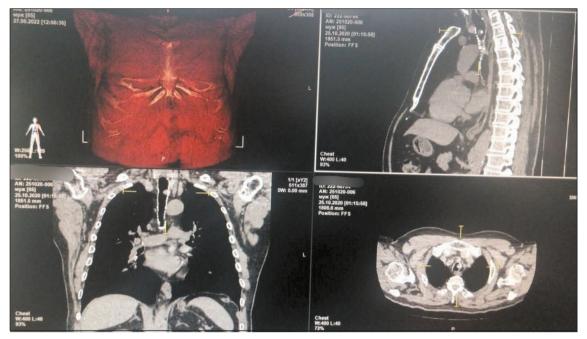


Рис. 1. КТ органов грудной клетки от 25.10.20. В трахее на уровне C7-Th1 имеется округлое образование, размерами 10×9 мм. Примечание: рисунок выполнен авторами

Fig. 1. Chest CT scan (25.10.2020) showing tumor 10×9 mm in the trachea at the level of C7-Th1. Note: created by the authors

больницу с жалобами на дискомфорт в гортани, нехватку воздуха, кашель с трудноотделяемой мокротой. Около 2 мес назад появились затруднения в дыхании. Легкие приступы удушья при физической нагрузке постепенно нарастали и стали проявляться в покое.

Из анамнеза: при вспышке коронавирусной инфекции пациенту выполнялась КТ органов грудной клетки (31.10.20): по внутренней поверхности трахеи (на уровне C7-Th1) определялось округлое образование с четкими контурами, размерами 10×9 мм (рис. 1). Участковым врачом информация о наличии опухоли трахеи была игнорирована, больному о ней не сообщили. Пациент к онкологу не направлялся.

Фибробронхоскопия: гортань без особенностей. Просвет трахеи в верхней трети (на 2,0 см дистальнее голосовой щели) перекрыт на 2/3 экзофитным опухолевым образованием, исходящим из левой боковой и передней стенок. Образование протяженностью около 2,5 см, с неровной изъязвленной поверхностью на верхушке, плотно-эластической консистенции (соединительная ткань?). Биопсия. При биопсии кровоточивость не повышена. Мембранозная часть дистонична. Слизистая истончена. Карина: по центру, острая. Сосудистый рисунок выражен. Заключение: опухоль трахеи. Пролапс задней стенки трахеи и главных бронхов.

ИГХ: комплексная иммуноморфологическая картина в объеме исследованного материала (с учетом клинических данных) позволяет предполагать наличие хондромы. Малый объем материала не позволяет достоверно верифицировать имеющийся патологический процесс.

КТ органов грудной клетки (19.05.22.): в трахее по передней и левой латеральной стенкам определяется образование с локальным прорастанием в прилежащую паратрахеальную клетчатку, размерами 16×20 мм, в аксиальной плоскости. Данное образование значительно деформирует просвет трахеи. Признаки новообразования трахеи с распространением в прилежащую клетчатку (рис. 2).

При комплексном обследовании (ЭГДС, ФКС, УЗИ органов брюшной полости, КТ органов брюшной полости) данных за отдаленные метастазы нет. Проведен онкологический консилиум. Показано хирургическое лечение.

Плановое оперативное лечение выполнено 4.07.22. Положение больного на спине с валиком под лопатками и разгибанием шеи. Интубация трахеи была выполнена под фибробронхоскопическим контролем трубкой № 5 с целью профилактики травматического (интубационного) повреждения экзофитного компонента опухоли. Под комбинированным наркозом с миорелаксантами в условиях ИВЛ выполнена цервикотомия и частичная стернотомия до третьего межреберья. Выделена трахея, при этом в области 3-го и 4-го колец выявлена опухоль, деформирующая стенку трахеи по передней и левой боковой стенке, с прорастанием в паратрахеальную клетчатку (рис. 3). Начата ВЧ-вентиляция в дистальную треть трахеи, интубационная трубка удалена. Выполнена циркулярная резекция 2, 3 и 4-го колец трахеи в пределах здоровых тканей с лимфодиссекцией регионарных паратрахеальных лимфоузлов (рис. 4, 5).

Формирование межтрахеального анастомоза осуществлялось следующим способом. У края



Рис. 2. КТ органов грудной клетки от 19.05.22. В трахее по передней и левой латеральной стенкам опухоль с локальным прорастанием в паратрахеальную клетчатку, размерами 16×20 мм. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 2. Chest CT scan (19.05.2022) showing tumor with local growth into the paratracheal tissue (16×20 mm) in the trachea along the anterior and left lateral walls. Note: created by the authors

хрящевых колец наложены 2 шва-держалки. На мембранозную часть трахеи наложен обвивной непрерывный шов монофиламентной нитью пролен 3/0. С помощью швов-держалок сопоставлены края трахеи и завязан шов на мембранозной части (рис. 6). На хрящевую часть трахеи наложены отдельные 8-образные швы нитью пролен 3/0 и завязаны (рис. 7). Контроль на аэростаз. Выполнено укрытие передней полуокружности анастомоза с помощью капсулы щитовидной железы путем ее

прошивания (рис. 8). Загрудинно установлены 2 дренажа. Проволочные 8-образные швы на грудину. Послойное ушивание операционной раны. Подбородок нежестко фиксирован отдельными швами к коже грудной клетки без сгибания шеи по Grillo. Больной был переведен на спонтанное дыхание через 40 мин после операции, экстубирован.

Послеоперационный период протекал без осложнений. Пероральное питание смесями для сипинга начато на 3-и сут. Выписан на 10-е сут.



Рис. 3. Трахея с опухолью в области 3-го и 4-го колец. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 3. Trachea with a tumor in the area of the 3rd and 4th rings. Note: created by the authors

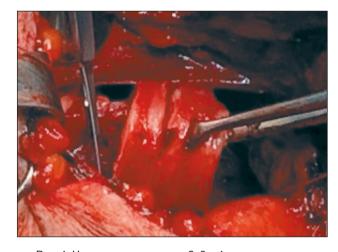


Рис. 4. Циркулярная резекция 2, 3 и 4-го колец трахеи. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 4. Circular resection of 2, 3 and 4 tracheal rings. Note: created by the authors

Патогистологическое заключение: морфологические признаки высокодифференцированной хондросаркомы. Отступ от краев опухоли в обе стороны на 0,3 см проксимально и 0,4 см дистально. Края резекции трахеи без опухолевых клеток. В 13 лимфоузлах признаки реактивных изменений, без признаков опухолевого роста.

Диагноз: Хондросаркома трахеи G1, pT1N0M0 стадия: I. Адъювантная терапия не проводилась.

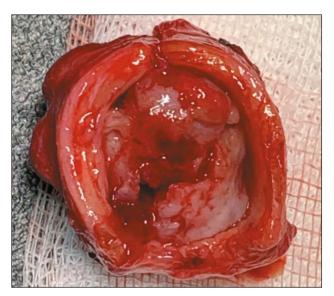


Рис. 5. Резецированная часть трахеи с опухолью. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 5. Resected part of the trachea with a tumor. Note: created by the authors



Рис. 7. На хрящевую часть трахеи наложены отдельные 8-образные швы нитью пролен 3/0. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig.7. The sutures on the cartilaginous part trachea. Note: created by the authors

Через 2 мес после операции при фибробронхоскопии выявлены разрастания на уровне слизистой в области анастомоза. При гистологическом исследовании — грануляции. Выполнена эндоскопическая резекция грануляций.

Контрольное обследование проведено через 4, 6, 9 и 12 мес (рис. 9, 10, 11). Данных за рецидив или прогрессирование заболевания не получено. Анастомоз без рубцевания и грануляций.

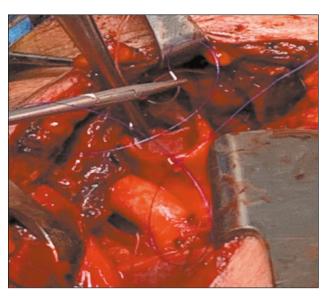


Рис. 6. С помощью швов-держалок сопоставлены края трахеи и завязан шов на мембранозной части.
Примечание: рисунок выполнен авторами
Fig. 6. The suture on the membranous part trachea.
Note: created by the authors

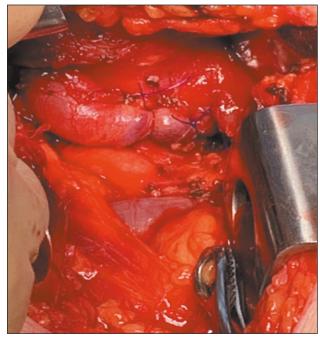


Рис. 8. Выполнено укрытие передней полуокружности анастомоза с помощью капсулы щитовидной железы путем ее прошивания. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 8. The anterior semicircle of the anastomosis was covered using the thyroid capsule. Note: created by the authors

ФБС (24.07.23): в верхней трети трахеи в 2,0 см от голосовой щели определяется циркулярный рубец в месте ранее сформированного анастомоза, просвет трахеи в этой области минимально деформирован, свободно проходим. По ходу рубца определяются лигатуры. Просвет трахеи дистальнее рубца не деформирован. Слизистая физиологической окраски. Карина по центру, острая.

При контрольном обследовании через 2 года после операции, по данным ФБС (10.07.24): в верхней трети трахеи, в 2,0 см от голосовой щели определяется циркулярный рубец в месте ранее наложенного анастомоза, просвет трахеи в этой области незначительно деформирован, свободно проходим. Просвет трахеи дистальнее рубца не деформирован. Карина по центру, острая. В дистальных отделах бронхиального дерева — без особенностей (рис. 12). При контрольной КТ трех зон — без признаков рецидива заболевания. В области

шеи и органах грудной клетки в зоне трахеального анастомоза патологических образований не выявлено. ПЭТ/КТ: очагов патологической метаболической активности не выявлено. Пациент сохраняет хороший функциональный статус, продолжает работать, клинически чувствует себя удовлетворительно. При умеренной физической нагрузке одышки нет.

Обсуждение

Как уже отмечалось выше, в современной литературе представлены данные лишь о 35 пациентах. Средний возраст пациентов на момент диагностики составлял 68 лет (возрастной интервал — от 58 до 75 лет), в абсолютном большинстве они были мужчинами — в 91 % случаев. Наиболее частыми симптомами при первичном обращении были одышка (до 80 % наблюдений), сухой кашель (до 40 %), а также свистящее дыхание и стридор (до 37 %).

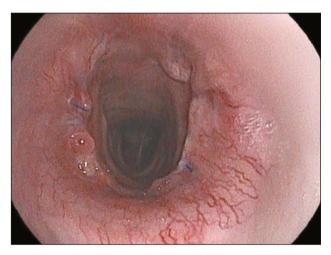


Рис. 9. Анастомоз через 4 мес. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 9. Anastomosis after four months. Note: created by the authors

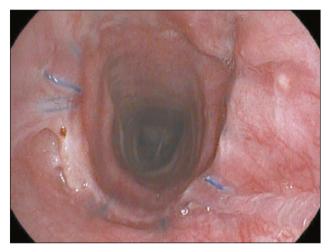


Рис. 10. Анастомоз через 6 мес. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 10. Anastomosis after six months. Note: created by the authors

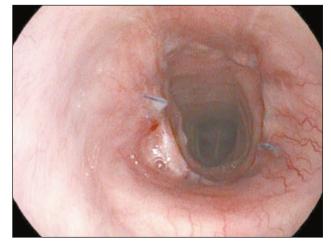


Рис. 11. Анастомоз через 1 год. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 11. Anastomosis after one year. Note: created by the authors

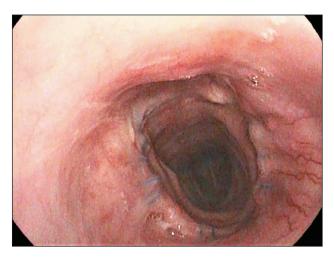


Рис. 12. Анастомоз через 2 года. Примечание: рисунок выполнен авторами Fig. 12. Anastomosis after two years. Note: created by the authors

Обычно последние осложнения встречаются при сужении просвета трахеи на 2/3 просвета (>75 %) и более [14]. Также достаточно часто встречались осиплость голоса, связанная с парезом возвратного гортанного нерва (до 20 %) [15]. Осложнения основного заболевания в виде дисфагии (до 6 %), а также кровохарканья выявлялись в 17 % от всех наблюдений. В среднем у абсолютного числа пациентов на момент диагностики отмечалось два и более симптома заболевания [16]. В связи с торпидным течением заболевания среднее время от появления симптомов до постановки диагноза составляло более 7 мес. Причем в большинстве случаев при первичном обращении к терапевтам пациентам выставлялся диагноз впервые возникшей бронхиальной астмы (до 20 % наблюдений) либо декомпенсации хронической обструктивной болезни легких (до 9 %), по поводу которых пациенты получали терапию без должного клинического дообследования [17, 18]. Средний размер опухоли на момент диагностики составлял около 3 см.

Следует отметить, что если в первом метаанализе, опубликованном по проблемам XC трахеи в 2017 г. и включавшем 17 наблюдений, были представлены данные о преимущественном поражении дистальной трети трахеи (частота поражения н/3 составляла 43,8 %, в/3 – 37,5 %, с/3 – 18,8 %) [19], то в более позднем из опубликованных метаанализов [16] уже превалировали опухоли проксимальной локализации в трахее – 54 %, тогда как опухоли дистальной трети составляли 29 %, а поражение средней трети диагностировалось в 17 % случаев.

В связи с неясной причиной трансформации нормальной хрящевой ткани в опухолевую, что вызывает достаточные сложности при морфологической дифференциальной диагностике доброкачественных энхондром от ХС [20], в последних превалировали опухоли низкой степени злокачественности (G1) – 54 %, тогда как опухоли средней (G2) и высокой (G3) степени злокачественности встречались в 31 и 3 % случаев соответственно. Однако именно в последних группах наиболее часто были рецидивы после радикального лечения — в 50 % и 13 % соответственно. Кальцификация в опухолевых узлах диагностирована в 71 %, экстратрахеальный рост опухоли — в 74 % наблюдений.

Золотым стандартом в диагностике опухолей трахеи является компьютерная томография, позволяющая описать точную локализацию первичной опухоли, связь с хрящевыми кольцами трахеи, наличие кальцинатов в опухоли как дифференциального симптома XC, а также оценить степень обструкции трахеи и наличие перитрахеального компонента и связь опухоли с окружающими структурами [21].

В настоящее время золотым стандартом в радикальном лечении XC трахеи являются открытые хирургические вмешательства с резек-

цией пораженного органа в пределах здоровых тканей – подобный подход был выполнен в 77 % наблюдений, причем в данной группе, при среднем периоде наблюдения более 30 мес, частота рецидива составила лишь 6 %. В противоположность данному подходу в литературе описывались случаи эндоскопического удаления экзофитного компонента опухоли с возможным проведением послеоперационной адъювантной лучевой терапии на зону первичного очага и регионарные лимфатические коллекторы средостения [22]. Данный нерадикальный подход к лечению выполнялся в случаях отказа от операции либо функциональной иноперабильности пациентов [23]. В этой группе частота нерадикальных операций составила до 75 %, а частота последующего локорегионарного рецидива была наибольшей и составила до 85,7 %. Следует отметить, что адъювантная химиотерапия не применялась ни в одном наблюдении, что обусловлено крайне низкой чувствительностью опухоли к химиопрепаратам, особенно высокодифференцированной ХС. Как уже отмечалось выше, стандартом в лечении ХС трахеи является циркулярная резекция трахеи в пределах здоровых тканей, со срочным исследованием линии резекции и формированием анастомоза «конец в конец» по общим правилам трахеальной хирургии, описанным H.C. Grillo и D.J. Mathisen [20, 24]. Попытки эндоскопической шейвинг-резекции не рекомендуются, кроме случаев необходимости временного улучшения трахеальной проходимости либо в варианте паллиативного вмешательства при функциональной иноперабильности пациентов [22]. В литературе приведен лишь один случай успешного эндоскопического удаления, причем в этом наблюдении опухоль описывалась по типу грибовидной с наличием выраженной ножки. Следует акцентировать внимание, что именно в группе эндоскопических резекций морфологически выявлялось наличие резидуальной опухоли либо развитие локального рецидива, причем разница с группой радикальных операций была статистически значимой (75 vs 9 %; p=0,001). При радикальных операциях регионарный рецидив был лишь у 2 пациентов, что еще раз определяет клиническую значимость достижения адекватных негативных краев резекции, подтвержденных при срочном морфологическом исследовании [22, 25].

Значение адьювантной лучевой терапии играет крайне ограниченную роль при первичной XC трахеи, учитывая то, что эта опухоль рассматривается как радиорезистентная [26]. В литературе представлен лишь один случай радикального хирургического лечения пациента с умеренно дифференцированной XC трахеи, получившего адьювантную конформную лучевую терапию (ЛТ) до СОД 50 Гр с развитием локорегионарного рецидива через 4 года, потребовавшего выполнения повторного радикального хирургического удаления: при последующем

наблюдении в течение 2 лет данных за рецидив или системное прогрессирование болезни не получено [27]. В остальных случаях проведение адъювантной ЛТ было обусловлено нерадикальным характером вмешательства либо противопоказаниями к его выполнению. В одном наблюдении адъювантная ЛТ после эндоскопического паллиативного удаления опухоли до СОД 60 Гр на зону первичного очага и 40 Гр на средостение обеспечила стабилизацию процесса в течение 82 мес [28].

В последнем ретроспективном когортном исследовании национальной онкологической базы (США) при анализе 5 427 случаев ХС показано, что проведение лучевой терапии характеризуется значимым улучшением 5-летней выживаемости при СОД более 60 Гр, особенно при применении современных вариантов ЛТ: протонная ЛТ, IMRT, стереотаксическая радиохирургия, особенно у пациентов с положительными краями резекции [26].

Следует отметить, что адъювантная ХТ не рассматривается как вариант комбинированного лечения, что определяется ее низкой эффективностью [29]. Согласно данным обзора, посвященного нетрахеальным XC, системная цитотоксическая терапия способна повлиять лишь на безрецидивную выживаемость (БРВ), в особенности у пациентов с хорошим функциональным статусом, солитарным характером отдаленных очагов, а также при комбинации различных цитотоксических агентов, не влияя в целом на общую выживаемость (OB). Согласно данным обзора литературы по проблеме трахеальных ХС, в общей группе пациентов при применении различных методов лечения 5-летняя БРВ составляла 58 %, тогда как опухоль-специфическая выживаемость достигала 90 % в этот период наблюдения. Эти цифры еще раз отражают индолентный характер течения ХС трахеи, особенно при опухолях низкой степени злокачественности.

Наиболее часто рецидивные опухоли выявлялись у пациентов старшей возрастной группы (75 и более лет), получавших эндоскопическое или комбинированное лечение, особенно при его нерадикальном характере. Еще одним важным фактором в развитии рецидива болезни являлась морфологическая дифференцировка, причем при низкодифференцированной ХС возникновение рецидива статистически носило пограничный

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

- 1. Mohajeri G., Hekmatnia A., Ahrar H., Hekmatnia F., Nia R.B., Afsharmoghadam N., Eftekhari M., Jafarpishe S. A rare case of laryngotracheal chondrosarcoma in a patient with past history of radioiodine therapy for thyroid cancer. Adv Biomed Res. 2013; 2: 74. doi: 10.4103/2277-9175.115802.
- 2. Maia D., Elharrar X., Laroumagne S., Maldonado F., Astoul P., Dutau H. Malignant transformation of a tracheal chondroma: The second reported case and review of the literature. Rev Port Pneumol (2006). 2016; 22(5): 283–86. doi: 10.1016/j.rppnen.2016.04.003.
- 3. Herget G.W., Strohm P., Rottenburger C., Kontny U., Krauß T., Bohm J., Sudkamp N., Uhl M. Insights into Enchondroma, Enchondromatosis and the risk of secondary Chondrosarcoma. Review of the literature with an emphasis on the clinical behaviour, radiology, malignant

характер, нумерически превышая его частоту при высокодифференцированных опухолях. Другие клинические факторы, такие как пол, локализация опухоли в трахее, наличие симптомов на момент диагностики, размер, наличие экстратрахеального компонентов либо наличие кальцинатов в первичной опухоли, значимо не влияли на частоту рецидивов [16].

Практически во всех случаях ХС трахеи даже при значимой местной распространенности процесса отмечается отсутствие отдаленных метастазов, причем при нерадикальном характере хирургического лечения с развитием локорегионарного рецидива только в одном случае регистрировалось появление отдаленных метастазов [30]. В этом наблюдении авторы отметили трансформацию первичной опухоли с развитием локорегионарного рецидива после удаления трахеальной хондромы с морфологическим подтверждением XC высокой степени злокачественности G3 и появлением отдаленных метастазов. Пациент погиб на фоне проведения системной терапии спустя 36 мес с момента удаления первичной опухоли – единственный случай опухоль-специфической летальности, описанный в литературе.

Заключение

В настоящее время данные литературы, обобщающие накопленный клинический опыт, позволяют отметить, что XC трахеи наиболее часто характеризуется как опухоль низкой степени злокачественности, имеющая низкую частоту метастазирования, включая лимфогенное. Золотым стандартом в лечении этой опухоли является хирургическая резекция трахеи с негативными краями, что позволяет достичь неплохих показателей 5-летней выживаемости – до 90 %, даже в случае отсутствия адъювантной лучевой и химиотерапии. Комбинированное лечение показано лишь пациентам с невозможностью выполнения радикальной операции либо при паллиативных эндоскопических вмешательствах. Редкий характер данной опухоли определяет необходимость тщательного мониторинга всех случаев ХС трахеи с необходимостью описания новых наблюдений с представлением клинических особенностей случаев, подробным описанием лечения и представлением отдаленных результатов.

transformation and the follow up. Neoplasma. 2014; 61(4): 365–78. doi: $10.4149/neo_2014_046$.

- 4. Nazeri E., Gouran Savadkoohi M., Majidzadeh-A K., Esmaeili R. Chondrosarcoma: An overview of clinical behavior, molecular mechanisms mediated drug resistance and potential therapeutic targets. Crit Rev Oncol Hematol. 2018; 131: 102–9. doi: 10.1016/j.critrevonc.2018.09.001.
- 5. Amyere M., Dompmartin A., Wouters V., Enjolras O., Kaitila I., Docquier P.L., Godfraind C., Mulliken J.B., Boon L.M., Vikkula M. Common somatic alterations identified in maffucci syndrome by molecular karyotyping. Mol Syndromol. 2014; 5(6): 259–67. doi: 10.1159/000365898.
- 6. Wagnetz U., Patsios D., Darling G., Las Heras F., Hwang D. Tracheal chondrosarcoma--a rare complication in Maffucci syndrome. Br J Radiol. 2009; 82(981): 178–81. doi: 10.1259/bjr/17386896.

- 7. de Almeida J.R., Pagedar N.A., Keshavjee S., Gilbert R. Chondrosarcoma of the trachea in a patient with Maffucci syndrome. J Otolaryngol Head Neck Surg. 2010; 39(2).
- 8. Daniels A.C., Conner G.H., Straus F.H. Primary chondrosarcoma of the tracheobronchial tree. Report of a unique case and brief review. Arch Pathol. 1967; 84(6): 615–24.
- 9. Fallahnejad M., Harrell D., Tucker J., Forest J., Blakemore W.S. Chondrosarcoma of the trachea. Report of a case and five-year follow-up. J Thorac Cardiovasc Surg. 1973; 65(2): 210–13.
- 10. Weber A.L., Shortsleeve M., Goodman M., Montgomery W., Grillo H.C. Cartilaginous tumors of the larynx and trachea. Radiol Clin North Am. 1978; 16(2): 261–67.
- 11. Slasky B.S., Hardesty R.L., Wilson S. Tracheal chondrosarcoma with an overview of other tumors of the trachea. J Comput Tomogr. 1985; 9(3): 225–31. doi: 10.1016/0149-936x(85)90066-9.
- 12. Matsuo T., Kinoshita S., Iwasaki K., Shibata M., Ushio T., Kawata S., Gotanda T. Chondrosarcoma of the trachea. A case report and literature review. Acta Cytol. 1988; 32(6): 908–12.
- 13. Ryabov A., Pikin O., Sokolov V., Volchenko N. Primary chondrosarcoma of the trachea with extensive extraluminal growth. Eur J Cardiothorac Surg. 2017; 52(3): 601–3. doi: 10.1093/ejcts/ezx118.
- 14. Farrell M.L., Gluckman J.L., Biddinger P. Tracheal chondrosarcoma: a case report. Head Neck. 1998; 20(6): 568–72. doi: 10.1002/(sici)1097-0347(199809)20:6<568::aid-hed13>3.0.co;2-d.
- 15. Kiriyama M., Masaoka A., Yamakawa Y., Niwa H., Fukai I., Yamada T. Chondrosarcoma originating from the trachea. Ann Thorac Surg. 1997; 63(6): 1772–73. doi: 10.1016/s0003-4975(97)00331-7.
- 16. Heuermann M., Bekker S., Czeczok T., Gregory S., Sharma A. Tracheal chondrosarcoma: A case report, systematic review, and pooled analysis. Cancer Rep (Hoboken). 2022; 5(7). doi: 10.1002/cnr2.1537.
- 17. Maish M., Vaporciyan A.A. Chondrosarcoma arising in the trachea: a case report and review of the literature. J Thorac Cardiovasc Surg. 2003; 126(6): 2077–80. doi: 10.1016/s0022-5223(03)00949-8.
- 18. Mirza F., Paul S., Stiles B.M., Piotti K.C., Kawaguchi K.R., Altorki N.K. Adult onset asthma. Ann Thorac Surg. 2010; 90(2). doi: 10.1016/j.athoracsur.2010.05.040.
- 19. Kutzner E.A., Park J.S., Zaheer S., Inman J.C. Tracheal Chondrosarcoma: Systematic Review of Tumor Characteristics, Diagnosis, and Treatment Outcomes with Case Report. Case Rep Oncol Med. 2017. doi: 10.1155/2017/4524910.
- 20. Grillo H.C. Surgery of the Trachea and Bronchi. Hamilton, London: BC Decker Inc, 2004. 872 p.

- 21. Andolfi M., Vaccarili M., Crisci R., Puma F. Management of tracheal chondrosarcoma almost completely obstructing the airway: a case report. J Cardiothorac Surg. 2016; 11(1): 101. doi: 10.1186/s13019-016-0498-8.
- 22. Carretta A., Ciriaco P., Bandiera A., Muriana P., Arrigoni G., Negri G. Therapeutic strategy for tracheal chondrosarcoma: report of two cases. Monaldi Arch Chest Dis. 2020; 90(1). doi: 10.4081/monaldi.2020.1223.
- 23. Daddi G., Puma F., Avenia N., Santoprete S., Casadei S., Urbani M. Resection with curative intent after endoscopic treatment of airway obstruction. Ann Thorac Surg. 1998; 65(1): 203–7. doi: 10.1016/s0003-4975(97)01124-7.
- 24. Mathisen D.J. Tracheal Resection and Reconstruction: How I Teach It. Ann Thorac Surg. 2017; 103(4): 1043–48. doi: 10.1016/j. athoracsur.2016.12.057.
- 25. Barisione E., Rossi G.A., Salio M. Gradually worsening dyspnea and dry cough in an elderly patient. Monaldi Arch Chest Dis. 2017; 87(2): 834. doi: 10.4081/monaldi.2017.834.
- 26. Catanzano A.A., Kerr D.L., Lazarides A.L., Dial B.L., Lane W.O., Blazer D.G., Larrier N.A., Kirsch D.G., Brigman B.E., Eward W.C. Revisiting the Role of Radiation Therapy in Chondrosarcoma: A National Cancer Database Study. Sarcoma. 2019. doi: 10.1155/2019/4878512.
- 27. Раджабова З.А., Котов М.А., Митрофанов А.С., Пономарева О.И., Раджабова М.А., Левченко Е.В. Хондросаркома трахеи: случай успешного хирургического лечения. Опухоли головы и шеи. 2019; 9(2): 95–98. [Radzhabova Z.A., Kotov M.A., Mitrophanov A.S., Ponomareva O.I., Radzhabova M.A., Levchenko E.V. Chondrosarcoma of trachea: case report of successful surgical treatment of local recurrence. Head and Neck Tumors (HNT). 2019; 9(2): 95–98. (in Russian)]. doi: 10.17650/2222-1468-2019-9-2-95-98. EDN: JZNCGQ.
- 28. Mendonça V., Jorge M., Monteiro-Grillo I., Palhano M.J., Feijó S. Tracheal chondrosarcoma. Clin Transl Oncol. 2010; 12(8): 576–80. doi: 10.1007/s12094-010-0557-x.
- 29. Italiano A., Mir O., Cioffi A., Palmerini E., Piperno-Neumann S., Perrin C., Chaigneau L., Penel N., Duffaud F., Kurtz J.E., Collard O., Bertucci F., Bompas E., Le Cesne A., Maki R.G., Ray Coquard I., Blay J.Y. Advanced chondrosarcomas: role of chemotherapy and survival. Ann Oncol. 2013; 24(11): 2916–22. doi: 10.1093/annonc/mdt374.
- 30. Salminen Ú.S., Halttunen P., Taskinen E., Mattila S. Recurrence and malignant transformation of endotracheal chondroma. Ann Thorac Surg. 1990; 49(5): 830–32. doi: 10.1016/0003-4975(90)90039-9.

Поступила/Received 28.01.2025 Одобрена после рецензирования/Revised 03.02.2025 Принята к публикации/Accepted 10.02.2025

СВЕДЕНИЯ ОБ АВТОРАХ

Тер-Ованесов Михаил Дмитриевич, доктор медицинских наук, профессор, заведующий кафедрой онкологии и лучевой терапии, ФГБОУ ВО «Российский университет медицины» Минздрава России; ведущий научный сотрудник, ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр онкологии им. Н.Н. Блохина» Минздрава России (г. Москва, Россия). SPIN-код: 5400-1301. ORCID: 0000-0002-0042-1150.

Аксарин Алексей Александрович, доктор медицинских наук, доцент кафедры хирургических болезней, БУ ВО ХМАО-Югры «Сургутский государственный университет»; руководитель окружного онкологического центра, БУ «Сургутская окружная клиническая больница» (г. Сургут, Россия). SPIN-код: 3942-3223. ORCID: 0000-0002-7441-9846.

Копейка Сергей Михайлович, заведующий онкологическим отделением абдоминальной и торакальной онкологии, БУ «Сургутская окружная клиническая больница» (г. Сургут, Россия). SPIN-код: 3956-3163. ORCID: 0009-0005-2450-8516.

ВКЛАД АВТОРОВ

Тер-Ованесов Михаил Дмитриевич: разработка концепции научной работы, анализ научной работы, написание статьи, критический пересмотр с внесением ценного интеллектуального содержания, утверждение публикуемой версии статьи.

Аксарин Алексей Александрович: разработка концепции научной работы, анализ научной работы, написание статьи, критический пересмотр с внесением ценного интеллектуального содержания, утверждение публикуемой версии статьи.

Копейка Сергей Михайлович: анализ научной работы, критический пересмотр с внесением ценного интеллектуального содержания.

Все авторы одобрили финальную версию статьи перед публикацией, выразили согласие нести ответственность за все аспекты работы, подразумевающую надлежащее изучение и решение вопросов, связанных с точностью и добросовестностью любой части работы.

Финансирование

Это исследование не потребовало дополнительного финансирования.

Конфликт интересов

Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Информированное согласие

От пациента получено письменное информированное добровольное согласие на публикацию описания клинического случая и публикацию фотоматериалов в медицинском журнале, включая его электронную версию (дата подписания: 16.12.24).

ABOUT THE AUTHORS

Mikhail D. Ter-Ovanesov, MD, DSc, Professor, Head of the Department of Oncology, Russian University of Medicine of the Ministry of Health of Russia; Leading Researcher, N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology of the Ministry of Health of Russia (Moscow, Russia). ORCID: 0000-0002-0042-1150.

Aleksei A. Aksarin, MD, DSc, Associate Professor, Department of Surgical Diseases, Surgut State University; Head of the Oncology Center, Surgut Regional Clinical Hospital (Surgut, Russia). ORCID: 0000-0002-7441-9846.

Sergei M. Kopeyka, MD, Head of the Department of Abdominal and Thoracic Oncology, Surgut Regional Clinical Hospital (Surgut, Russia). ORCID: 0009-0005-2450-8516.

AUTHOR CONTRIBUTIONS

Mikhail D. Ter-Ovanesov: development of the concept of scientific work, analysis of scientific work, drafting of the manuscript, critical revision with the introduction of valuable intellectual content.

Aleksei A. Aksarin: development of the concept of scientific work, analysis of scientific work, drafting of the manuscript, critical revision with the introduction of valuable intellectual content.

Sergei M. Kopeyka: critical revision with the introduction of valuable intellectual content.

All authors approved the final version of the manuscript prior to publication and agreed to be accountable for all aspects of the work in ensuring that questions related to the accuracy or integrity of any part of the work were appropriately investigated and resolved.

Funding

This study required no funding.

Conflict of interests

The authors declare that they have no conflict of interest.

Voluntary informed consent

Written informed voluntary consent was obtained from the patient for the publication of a case report and facial photographs in medical journal (date of signing 16/12/2024).