

УДК 616.27-006.311-06:616.135+616.132.15)-007.271-053.36-089.818.3

А.А. Мальська¹, О.Б. Куриляк², О.В. Стогова³, Раад Таммо³, Б.Я. Мальований²

Гемангіома середостіння і коарктація аорти – рідкісне поєднання (клінічний випадок)

¹Львівський національний медичний університет імені Данила Галицького, Україна² КНП ЛОР «Центр дитячої медицини 'ОХМАТДИТ'», м. Львів, Україна³ДУ «Науково-практичний медичний центр дитячої кардіології та кардіохірургії МОЗ України», м. Київ

Modern Pediatrics. Ukraine. (2025). 5(149): 143-150; doi 10.15574/SP.2025.5(149).143150

For citation: Malska AA, Kurilyak OB, Stogova OV, Tammo Raad, Malovanyy BYa. (2025). Mediastinal hemangioma and aortic coarctation – a rare combination (a clinical case). Modern Pediatrics. Ukraine. 5(149): 143-150. doi: 10.15574/SP.2025.5(149).143150.

Коарктація аорти (КА) – це вроджена вада серця, що характеризується звуженням просвіту аорти, найчастіше в ділянці перешийка, що призводить до порушення системного кровопостачання. Гемангіома – це доброякісна судинна пухлина, яка трапляється приблизно в 10% немовлят, причому частіше в дівчаток. У більшості випадків вона перебігає безсимптомно, проте за значних розмірів може зумовлювати компресію навколишніх структур, таких як аорта чи дихальні шляхи, що призводить до порушення гемодинаміки або респіраторних розладів. **Мета** – навести клінічний випадок рідкісного поєднання шкідливої шкірної гемангіоми на грудній клітці, середостінної гемангіоми та КА в дитини віком 1 місяць; висвітлити особливості діагностування і лікування.

Клінічний випадок. У дитини віком 1 місяць, народженої на 35-му тижні гестації другою з двійні після екстракорпорального запліднення, на передній поверхні грудної клітки візуалізовано велику гемангіому. Перед терапією бета-блокаторами дитину скеровано на консультацію до кардіолога, за даними ехокардіографії виявлено КА з високим градієнтом тиску. Візуалізовано масивну судинну пухлину середостіння з поширенням на великі судини, що унеможливило радикальну хірургічну корекцію вади серця через високий ризик масивної інтраопераційної кровотечі. Виконано балонну ангіопластику з частковим зниженням градієнта тиску, після чого пацієнтці призначено терапію бета-блокаторами з подальшим планом радикального корегування після регресії гемангіоми.

Висновки. У наведеному клінічному випадку гемангіома передньої грудної стінки стала підставою для розширеного обстеження, що дало змогу своєчасно діагностувати не лише середостінну пухлину, але й КА. Це вказує на потребу комплексного обстеження дітей із гемангіомами для заперечення супутніх судинних аномалій, зокрема, уражень дуги аорти і проявів синдрому PHACES. Дослідження виконано відповідно до принципів Гельсінської декларації. На проведення дослідження отримано інформовану згоду батьків дитини.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

Ключові слова: гемангіома середостіння, коарктація аорти, балонна дилатація, діти.

Mediastinal hemangioma and aortic coarctation – a rare combination (a clinical case)

A.A. Malska¹, O.B. Kurilyak², O.V. Stogova³, Raad Tammo³, B.Ya. Malovanyy²¹Danylo Halytsky Lviv National Medical University, Ukraine²Center for Pediatric Medicine «OKHMATDYT», Lviv, Ukraine³SI «Scientific and Practical Medical Center for Pediatric Cardiology and Cardiac Surgery of the Ministry of Health of Ukraine», Ukraine

Coarctation of the aorta (CoA) is a congenital heart defect characterized by narrowing of the aortic lumen, most often in the region of the isthmus, leading to impaired systemic blood flow. Hemangioma is a benign vascular tumor that occurs in about 10% of infants, more frequently in girls. In most cases, they are asymptomatic; however, when large, they may compress adjacent structures such as the aorta or airways, leading to hemodynamic compromise or respiratory disorders.

Aim – to present a clinical case of a rare combination of a cutaneous hemangioma of the chest wall, a mediastinal hemangioma, and coarctation of the aorta in a one-month-old infant, highlighting the diagnostic and therapeutic challenges.

Clinical case. A one-month-old infant, born at 35 weeks of gestation as the second of twins conceived via in vitro fertilization, was noted to have a large hemangioma on the anterior chest wall. Before initiating beta-blocker therapy, the child was referred to a cardiologist, and echocardiography revealed coarctation of the aorta with a high pressure gradient. Computed tomography of the chest revealed a massive mediastinal vascular tumor extending to major vessels, which precluded radical surgical repair of the heart defect due to the high risk of massive intraoperative bleeding. Under these circumstances, balloon angioplasty was performed, resulting in partial reduction of the pressure gradient, after which beta-blocker therapy was initiated, with the plan for radical correction following hemangioma regression.

Conclusions. In our case, the chest wall hemangioma prompted extended diagnostic evaluation, which enabled timely identification of not only the mediastinal tumor but also coarctation of the aorta. This emphasizes the importance of comprehensive evaluation of children with hemangiomas to rule out associated vascular anomalies, including aortic arch involvement and PHACES syndrome.

The study was conducted in accordance with the principles of the Declaration of Helsinki. Informed consent was obtained from participant.

The authors declare no conflict of interest.

Keywords: mediastinal hemangioma, coarctation of the aorta, balloon dilatation, children.

Вступ

Коарктація аорти (КА) – це вроджена вада серця, що характеризується звуженням просвіту аорти, найчастіше в ділянці перешийка, що призводить до порушення

системного кровопостачання. Ця патологія становить приблизно 5–8% усіх вроджених вад серця (ВВС), а її клінічні прояви залежать від ступеня звуження і часу закриття артеріальної протоки.

Гемангіома – це доброякісна судинна пухлина, яка трапляється приблизно в 10% немовлят,

причому частіше в дівчаток (у 2–5 разів частіше, ніж у хлопчиків).

Поєднання КА і гемангіоми середостіння є вкрай рідкісним клінічним явищем, а в літературі описано лише поодинокі подібні випадки.

Мета дослідження – висвітлити особливості діагностування і хірургічного лікування на прикладі клінічного випадку рідкісного поєднання гемангіоми на грудній клітці, середостінної гемангіоми і КА в дитини віком 1 місяць.

Коарктація аорти – це звуження грудної аорти в ділянці перешийка, що розташовується в місці впадіння артеріальної протоки плода. Як ізольовано, так і в поєднанні з іншими вадами серця КА є однією з найпоширеніших ВВС. Трапляється з частотою 3–4 випадки на 10 тис. живонароджених [9], частіше в хлопчиків, у співвідношенні 2:1 [8]. Клінічні прояви вади залежать від ступеня звуження і довжини звуженої ділянки аорти.

Ця ВВС навіть після ідеального хірургічного корегування залишається чинником розвитку артеріальної гіпертензії та має довготривалі наслідки для пацієнта незалежно від віку встановлення діагнозу.

Коарктація аорти часто поєднується з іншими ВВС: двостулковим аортальним клапаном (45–75%), дефектом міжпередсердної перегородки, комплексом Шона і перерваною дугою аорти [2,14,19].

Інфантильна гемангіома (ІГ) – це найпоширеніша судинна пухлина в дітей. Її патогенез залишається недостатньо вивченим, але вважається, що він пов'язаний з аномальною відповіддю стовбурових клітин на такі стимули, як гіпоксія і ренін-ангіотензинова система. ІГ зазвичай з'являється протягом перших кількох тижнів життя і має характерний клінічний перебіг із фазами проліферації та інволюції. Зовнішній вигляд ІГ залежить від глибини і місця розташування. Виділяють поверхневу, змішану і глибоку форми ІГ, а також ІГ із мінімальним або зупиненим ростом. Велика ІГ на обличчі потребує обстеження на предмет синдрому PHACE: P – Posterior fossa malformations – мальформації задньої черепної ямки, H – Hemangioma – великі сегментарні гемангіоми обличчя, A – Arterial anomalies – аномалії мозкових артерій, C – Cardiac defects / Coarctation of the aorta – ВВС, зокрема КА, E – Eye abnormalities – аномалії очей. У дітей із PHACE-синдромом КА зазвичай має ускладнений характер і може супроводжуватися обструк-

тивними чи аневризматичними ураженнями супрааортальних судин, що значно ускладнює хірургічне лікування і потребує індивідуального підходу. Прогноз у таких пацієнтів значною мірою залежить від серцевих аномалій і супутніх патологій [16,15].

Середостінні гемангіоми є рідкісною патологією, що трапляються з частотою 0,5%. У більшості випадків вони перебігають безсимптомно, проте за значних розмірів можуть зумовлювати компресію навколишніх структур, таких як аорта чи дихальні шляхи, що призводить до порушення гемодинаміки або респіраторних розладів [7,13].

Поєднання КА і гемангіоми середостіння є вкрай рідкісним клінічним явищем, а в літературі описано лише поодинокі подібні випадки.

Клінічний випадок

Дитину віком 1 місяць госпіталізовано до відділення хірургії Львівської дитячої лікарні «ОХМАТДИТ» на консультацію для обстеження і призначення лікування гемангіоми бета-блокаторами.

З анамнезу відомо, що дівчинка народилася на 35-му тижні гестації, друга з двійні (екстракорпоральне запліднення – ЕКЗ) шляхом кесаревого розтину, з масою тіла 2300 г, зростом 46 см. Спадковий анамнез не обтяжений, відомо, що мати працювала на промисловому підприємстві під час вагітності.

Перед призначенням бета-блокаторів дитину скеровано на консультацію до кардіолога. На момент огляду на грудній клітці візуалізовано гемангіому великих розмірів, під час аускультативної серця чисті звучні, а ззаду на спині – систолічний шум 3/6 за шкалою Левіне (рис. 1). Пульсація на стегнових артеріях ослаблена.

За даними ехокардіографічного обстеження діагностовано ВВС: КА з градієнтом 50–59 мм рт. ст. зі збереженою прохідністю. Візуалізовано гіпоплазовану дугу аорти: сегмент С – 0,8 см, В – 0,7 см, А – 0,3 см (рис. 2, 3).

Камери серця не розширені, що суттєво утруднює встановлення діагнозу. Хід магістральних судин правильний. Дефектів перегородок немає. Функція та структура клапанів, скоротливість міокарда добра. Ознак легеневої гіпертензії немає. У черевній аорті – слабо пульсуючий кровотік. Порушень сегментарної скоротливості немає. Артеріальна протока закрита. Відкрите овальне вікно 2 мм у стадії закриття.



Рис. 1. Гемангіома грудної клітки

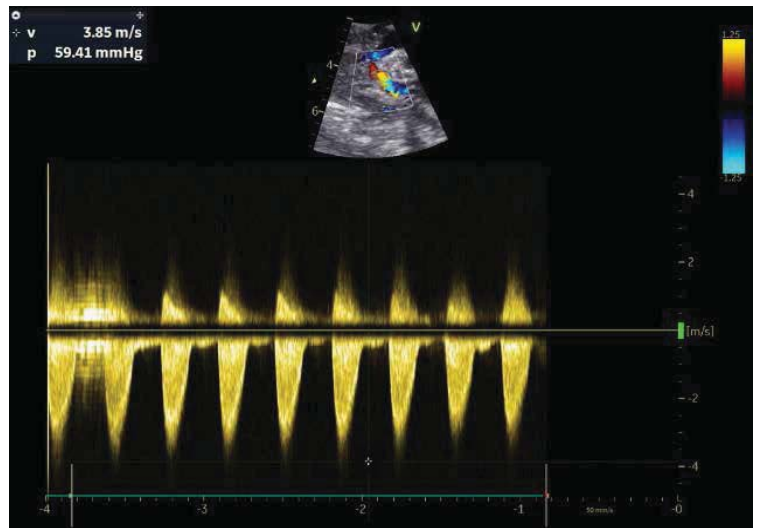


Рис. 2. 2D-ехокардіографія з доплером. Супрастернальна позиція. Градієнт тиску на нисхідній аорті 59,1 мм рт. ст.



Рис. 3. Ехокардіографія. Супрастернальна позиція. Звужений сегмент аорти А – 3 мм

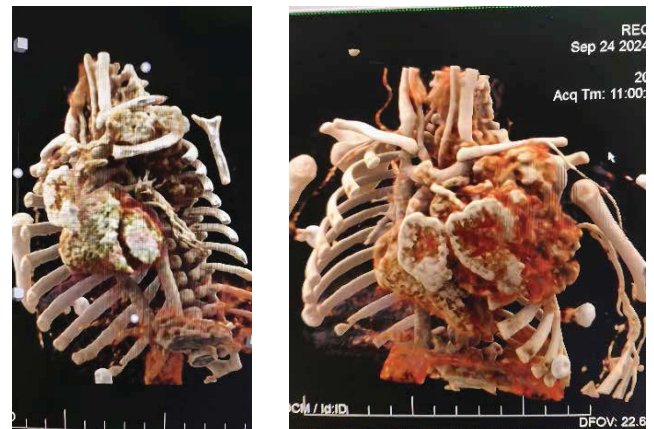


Рис. 4. Комп'ютерна томографія грудної порожнини/легень, ангіографія судин грудної порожнини; аортографія з внутрішньовенним контрастуванням.

Дитину скеровано на хірургічне лікування до кардіохірургічного центру, де проведено комп'ютерну томографію (КТ) грудної порожнини/легень, ангіографію судин грудної порожнини; аортографію з внутрішньовенним контрастуванням.

На КТ візуалізовано нормальне положення внутрішніх органів у грудній клітці (*Situs solitus*).

Визначено лівобічну дугу аорти, порядок відходження судин від дуги аорти: плечоголовний стовбур і ліва загальна сонна артерія відходять близько один до одного, ліва підключична артерія. Діаметр стовбура легеневої артерії – 0,9 см, правої гілки легеневої артерії 0,7 см, лівої – 0,65 см. Усі легеневі вени впадають у ліве передсердя, інфільтративно-вогнищевих змін у легенях немає.

По передньо-лівій поверхні грудної клітини з поширенням на ший до рівня щитоподібної залози, у ліву пахвову, підключичну ділянку,

середостіння (переважно зліва), паравертебрально, і в ліву плевральну порожнину візуалізується гемангіома розмірами 9,5×5,5 см.

Гемангіома окутує яремні вени ліворуч, загальну ліву сонну і ліву підключичну артерії, дугу аорти, низхідну аорту, трахею і стравохід, дещо зміщуючи їх вправо, але не здавлюючи просвіт, і доходить до рівня лівого передсердя. Кровоопитання гемангіоми – за рахунок артерій щитоподібної залози, лівої підключичної та множинних бронхіальних артерій, які дренуються в підключичну вену (рис. 4).

Гемангіома, що окутує яремні вени ліворуч, загальну ліву сонну і ліву підключичну артерії, дугу аорти, низхідну аорту, трахею і стравохід та доходить до рівня лівого передсердя

Дитині проведено балонну ангіопластику, оскільки обширна гемангіома не дала змоги ви-

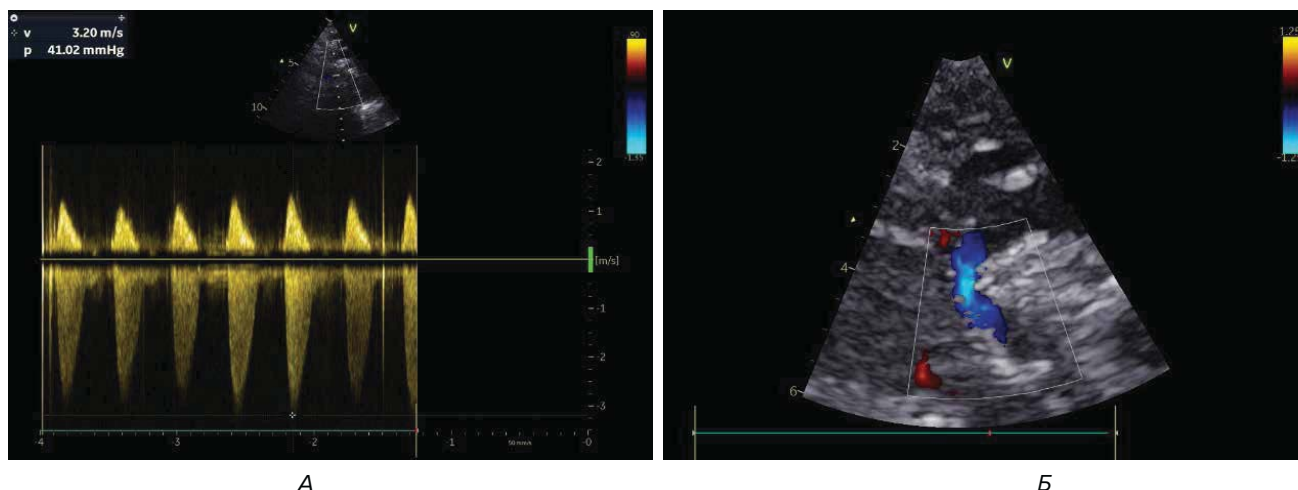


Рис. 5. 2D-ехокардіографія з доплером після балонної дилатації: А – супрастернальна позиція, градієнт тиску на низхідній аорті – 41,02 мм рт. ст.; Б – ехокардіографія з доплером після балонної дилатації

конати радикальну хірургічне корегування. Після балонної дилатації градієнт тиску залишався на рівні 42–44 мм рт. ст. (рис. 5А).

Судинний конгломерат не дав змоги повністю зняти компресію з перешийка дуги аорти. Дитині призначено лікування бета-блокаторами і заплановано радикальне хірургічне корегування за умови регресії гемангіоми.

Обговорення

У 2002 р. Abraham Matitiau та співавт. описали схожий випадок успішного лікування КА шляхом імплантації стента в симптоматичної дівчинки з величезною гемангіомою, що охоплювала грудну аорту. Цей випадок став викликом для лікарів, оскільки ні хірургічне втручання, ні балонна ангіопластика не були можливими варіантами лікування через розташування гемангіоми й анатомічні особливості КА [11]. 9-місячну дівчинку, що народилася з обширною гемангіомою обличчя та проходила тривале лікування гормонами, скерували на обстеження через системну гіпертензію та ознаки легкої застійної серцевої недостатності. За даними фізикального обстеження виявили виражену гіпертензію на верхніх кінцівках (до 180/90 мм рт. ст.), тахікардію і незначне тахіпное. Пульсації на стегнових артеріях не було. На електрокардіограмі візуалізували гіпертрофію лівого шлуночка. На ехокардіографії визначили гіпертрофований шлуночок із доброю фракцією викиду та дифузну, довгу, звивисту КА з градієнтом тиску 80 мм рт. ст. і відсутність пульсуючого кровотоку в низхідній аорті. За результатами магнітно-резонансної томографії виявили, що гемангіома оточує підголосникову

ділянку, поширюється назад у грудну клітку та опускається паравертебрально до рівня нирок. Низхідна грудна аорта оточена гемангіомою і звужена на ділянці довжиною 4 см через інвазію стінки аорти або зовнішню компресію. Артеріальна гіпертензія погано піддається лікуванню комбінуванням атенололу і каптоприлу.

Через розташування і розмір гемангіоми хірургічне лікування не можливе, тому прийняли рішення про усунення КА шляхом транскатетерного втручання. Катетеризацію серця провели під загальною анестезією через черезшкірний доступ до правої стегнової вени та артерії. Зафіксували піковий систолічний градієнт тиску 70 мм рт. ст. через КА. Ангіографічно діагностували дифузну і вузловату КА довжиною 3,5 см із мінімальним діаметром 2–3 мм. Діаметр поперечної дуги аорти та низхідної аорти був однаковим – 7 мм. Через значну довжину і звивистість ураженої ділянки провести балонну дилатацію було неможливо, тому прийняли рішення імплантувати стент по всій довжині КА. Систолічний артеріальний тиск знизився до 110–120 мм рт. ст., а пульсація на стегновій артеріях відновилася. За 2 місяці після втручання пацієнтка мала нормальний артеріальний тиск, без ознак серцевої недостатності.

Автори дійшли висновку, що зв'язок між гемангіомою обличчя та КА можна пояснити концепцією множинного ураження артерій. Як альтернативне пояснення вони припустили, що причиною стало порушення кровотоку: гемангіома могла відводити надлишкову кров у судини голови, що призводило до зменшення кровотоку через перешийок аорти [11].

Науковці зауважили, що лікування КА в цього пацієнта було складним завданням, оскільки всі можливі терапевтичні варіанти мали значні потенційні ризики.

Хірургічне усунення шляхом шунтування КА трансплантатом розглядали, але хірурги визнали його неможливим через ризик масивної та неконтрольованої кровотечі, як було і в наведеному нами випадку. Відкладання хірургічного втручання до моменту регресії гемангіоми в разі продовження антигіпертензивної терапії розглядали як крайній захід, оскільки в немовляти спостерігали тяжку гіпертензію, гіпертрофію шлуночка і серцеву недостатність.

Балонна ангіопластика є неефективною методикою для складної дифузної КА та має низьку ймовірність успіху за підвищеного ризику формування аневризми. Стентувати аорту було найкращим рішенням, оскільки імплантація стента потенційно захищає від формування аневризми, підтримуючи стінку артерії. Однак у маленьких дітей використання стентів є проблематичним, оскільки система доставки є відносно великою, а стент може бути розширений лише до розміру судини, розташованої проксимально або дистально від обструкції, а з часом і сам стент може створювати перешкоду. Але, як показав цей випадок, імплантація стентів для лікування КА можлива навіть у маленьких пацієнтів [11].

Автори зазначили, що пацієнтці знадобиться подальше розширення стента впродовж наступних років, а за цей час відбудеться інволюція гемангіоми, що дасть змогу провести радикальне хірургічне корегування, коли пацієнтка переросте максимальний діаметр стента [11].

У 2008 р. автори з Туреччини описали летальний випадок 2-місячної дівчинки з гемангіомою середостіння, яка здавлювала трахею, у поєднанні з правобічною дугою аорти та аномальною лівою підключичною артерією [3]. Дівчинка кашляла протягом 4 тижнів і мала виражену дихальну недостатність, які не піддавалися медикаментозному лікуванню. Для заперечення судинних аномалій провели ехокардіографію, на якій виявили правобічну дугу аорти і судинну структуру поблизу неї. За даними КТ ангіографії виявили виражений утвір розміром $2,5 \times 3 \times 4$ см, що походив із верхнього і поширювався в середнє і заднє середостіння. Утвір був обмежений знизу дугою аорти, а спереду – верхньою порожнистою веною. Нижній відділ трахеї був стиснутий. Су-

динна структура, діагностована під час ехокардіографії, виявилася гіперваскулярною пухлиною середостіння, що підтвердили на КТ. Також діагностували правобічну дугу аорти з аномальним відходженням лівої підключичної артерії, яке проходило позаду стравоходу. Під час хірургічного втручання утвір видалили, а за даними гістопатологічного аналізу підтвердили капілярну гемангіому. На жаль, після операції в пацієнтки розвинулися ускладнення, що призвели до летального наслідку.

У 2011 р. автори з Туреччини описали подібний клінічний випадок поєднання КА і середостінної гемангіоми в 14-річній дівчинки, госпіталізованої до лікарні зі скаргами на підвищений артеріальний тиск до 160/90 мм рт. ст. на правій руці, з різницею тиску 65 мм рт. ст. між правою рукою і ногою. Ззаду між лопатками вислухали систолічний шум 2/6 за шкалою Левіне. На ехокардіографії візуалізували концентричну гіпертрофію лівого шлуночка, КА з градієнтом тиску 60 мм рт. ст. На КТ із внутрішньовенним контрастуванням візуалізували виражену КА та пухлину, локалізовану в задньому середостінні. Грудна частина аорти окутана гемангіомою, 3 см сегмента звужені внаслідок стиснення стінки аорти. Мінімальний діаметр просвіту становив 5 мм. Дівчину прооперували, пухлину неможливо було видалити повністю, але компресію аорти вдалося усунути. За даними гістологічного дослідження підтвердили наявність капілярної гемангіоми. Пацієнтку виписали додому на 10-ту добу після операції в задовільному стані з градієнтом тиску між верхніми і нижніми кінцівками 10 мм рт. ст. [20].

Автори зазначили, що етіологія поєднання КА та гемангіоми не зрозуміла до кінця. Виділяють дві теорії: перша – виражена гіпоплазія істмусу, що виникає через ішемію, призводить до розвитку КА; це відбувається внаслідок посиленого кровотоку через гемангіому. Друга – знижений серцевий викид у ділянці нижче КА призводить до гіпоксії, що, своєю чергою, стимулює посилений ангіогенез [20,21].

Медикаментозне лікування гемангіоми є ефективним, проте такі гемангіоми потребують хірургічного висічення. Лігування артерій, лазерна терапія та кріотерапія є альтернативними методами лікування гемангіом.

Автори зробили висновок, що наявність середостінних гемангіом слід диференціювати з діагно-

Таблиця

Клінічні випадки середостінних гемангіом: вік пацієнтів на момент встановлення діагнозу, клінічні прояви, локалізація пухлини, методи діагностування і лікування

Автори	Вік встановлення діагнозу / стаття	Симптоми	Локалізація пухлини	Діагностування	Лікування
K. Ishi та співавт. [7]	7 років / дівчинка	Випадкова знахідка	Ліве переднє середостіння	Рентген: масивна середостінна тінь, що розширювалася в лівий бік. КТ: лівобічна передня середостінна пухлина прилягає до аорти та стінки грудної клітки зі щільністю м'яких тканин	Хірургічна резекція
S.B. Feinberg [5]	8 років / хлопчик	Випадкова знахідка	Ліве середостіння	Флюороскопія: не пульсуюча ліва паравертебральна середостінна пухлина від середньо-заднього рівня до і через діафрагму	Хірургічна резекція
N. Rotaru та співавт. [18]	9 років / дівчинка	Задишка, що наростала протягом останнього року	Передньо-верхнє середостіння	Рентген: патологічна тінь. КТ: овоїдної форми чітко окреслена пухлина у передньо-верхньому середостінні	Хірургічна резекція
K.M. Das та співавт. [4]	7 років / хлопчик	Випадкова знахідка	Середнє середостіння	КТ: гігантська середостінна судинна пухлина від біфуркації трахеї до діафрагми на шляху до непарної вени	Нічого
T.C. Mineo та співавт. [12]	17 років / дівчинка	Ортопное та постійний кашель. Осиплий голос, одиофагія	Середнє середостіння	Рентген: розширення середостіння. КТ: пухлина, що широко охоплює середостіння, та незначна компресія трахеї	Лікування преднізолоном
D. Rosenberg [17]	9 місяців / дівчинка	Задишка	Верхня частина грудної клітки	Рентген: величезна солідна пухлина в верхній правій частині грудної клітки, що виповнювала купол діафрагми	Хірургічна резекція
C.A. Moran та співавт. [13]	1) новонароджений хлопчик	Випадкова знахідка	Переднє середостіння	Немаєданих	Хірургічна резекція
	2) 1 місяць / хлопчик	Ректальна кровотеча, телеангіоектазії на обличчі	Заднє середостіння	Дані відсутні	Хірургічна резекція
	3) 2 роки / хлопчик	Кашель	Переднє середостіння	Дані відсутні	Хірургічна резекція
	4) 5 місяців / дівчинка	Кашель	Переднє середостіння	Дані відсутні	Хірургічна резекція

зом КА, хоча таке поєднання є вкрай рідкісним. Підозра на цю патологію до оперативного втручання може значно підвищити успішність операції та вплинути на вибір хірургічного підходу і тактику лікування.

У 2023 р. автори з Індії опублікували огляд випадків кавернозних середостінних гемангіом [10]. Проаналізували 77 опублікованих випадків середостінних пухлин, починаючи з 1953 року до 2022 року.

Серед обстежених пацієнтів був 31 (40,3%) чоловік і 46 (59,7%) жінок. Віковий діапазон становив від 0 до 74 років, середній вік – $39,18 \pm 21,67$ року. У 19 (24,7%) осіб анамнез хвороби був не обтяжений.

Клінічні прояви включали кардіальні симптоми у 19 (25,3%) пацієнтів і респіраторні симпто-

ми у 26 (34,7%) осіб. У 26 (33,8%) випадках новоутворення виявили випадково, як і в нашому випадку (завдяки наявності гемангіоми на передній грудній стінці).

Найчастішою локалізацією пухлини був передній відділ середостіння, що виявили в 41 (53,2%) випадку. У 16 (20,8%) осіб пухлина розташовувалася в середньому середостінні, у 16 (20,8%) – у верхньому середостінні, у 12 (15,6%) – у задньому середостінні. Лікування передбачало хірургічну резекцію в 71 (92,2%) пацієнта, з яких двоє також отримували медикаментозну терапію перед операцією. Консервативне лікування застосовували у 2 (2,6%) пацієнтів. Крім того, у 2 (2,6%) випадках діагноз встановили після смерті під час аутопсії.

Симптоми включали кашель, задишку, біль у грудній клітці, плевральний випіт, а в окремих

тяжких випадках кавернозні гемангіоми середостіння проявлялися як застійна серцева недостатність.

З усіх описаних випадків було 13 дітей віком від 0 до 17 років. Жоден з описаних випадків не поєднувався з КА, у більшості пацієнтів це була випадкова знахідка, у 5 з 13 пацієнтів спостерігали тривалий кашель, оскільки гемангіома стискала трахею.

Окрім безсимптомних випадків, клінічні прояви зазвичай залежать від локалізації пухлини в середостінні та ступеня компресії навколишніх структур. Серед можливих симптомів зазначають кашель, задишку, біль у грудях, кровохаркання, плевральний випіт, а в тяжких випадках – застійну серцеву недостатність.

У таблиці наведено деякі клінічні випадки середостінних гемангіом, описані в науковій літературі.

У 2021 р. автори з Єгипту описали два випадки поєднання глибоких паравертебральних гемангіом зі шкірними гемангіомами спини [1]. Автори описали два подібні клінічні випадки. Перший випадок стосувався немовляти з плоскою гемангіомою спини, у якого пізніше виявили задньосередостінну гемангіому, що тісно прилягала до аорти і здавлювала задні частини легеневих часток. Незважаючи на значний розмір, ознак критичної судинної компресії чи гемодинамічної нестабільності не виявили. Лікування пропранололом розпочали в 3-місячному віці, а припинили у віці 1,5 року. Контрольна КТ у 2 роки показала часткову регресію середостінної гемангіоми. Після повторного призначення пропранололу спостерігали подальшу регресію середостінної гемангіоми та інших уражень.

У другому випадку 6-місячну дівчинку госпіталізували до лікувальної установи з респіраторним дистресом і дифузною гемангіомою спини. На КТ виявили масивний задньо-середостінний утвір, що поширювався від заглоткового простору до рівня T11, охоплював дугу аорти та низхідну аорту, а також спричиняв зміщення трахеї. Додатково виявили аналогічне судинне ураження в лівій долі печінки.

Первинно лікування передбачало системні кортикостероїди. Біопсія під контролем КТ підтвердила діагноз гемангіоми. Розпочали терапію пропранололом із поступовим зниженням дозування стероїдів. Однак у дитини розвинулися по-

вторні епізоди бронхіту та пневмонії з бронхоспазмом, що потребувало госпіталізації до відділення інтенсивної терапії. У зв'язку з цим пропранолол тимчасово припинили, а терапію кортикостероїдами продовжили на 6 місяців.

Контрольне обстеження показало майже повну регресію шкірного ураження, значну регресію печінкового ураження і помірну регресію гемангіоми заднього середостіння.

В одному з випадків паравертебральна гемангіома спричинила середостінну компресію, що призвело до утруднення дихання в 6-місячному віці.

У першому випадку паравертебральні ураження локалізувалися нижче, тому не спричинили медіастинальної компресії.

Автори зробили висновок, що ці два випадки поєднання шкірної гемангіоми та середостіння можуть свідчити про нове поєднання: шкірні гемангіоми спини і середостінні гемангіоми.

Висновки

Інфантильні гемангіоми є поширеними судинними утворами, що можуть локалізуватися в підшкірній клітковині, печінці, кістках, центральній нервовій системі та селезінці.

Гемангіоми обличчя можуть бути пов'язані з аномаліями мозку і серця (синдром PHACES), тоді як множинні шкірні гемангіоми – з вісцеральними ураженнями, найчастіше в печінці.

Гемангіоми середостіння трапляються значно рідше, можуть бути випадковою знахідкою або поєднуватися з гемангіомами грудної клітки і спини. У більшості випадків вони безсимптомні, проте при компресії трахеї чи великих судин можуть спричиняти кашель, задишку або біль у грудях.

У наведеному нами випадку наявність гемангіоми на передній грудній стінці стала підставою для ретельного обстеження дитини, що дало змогу своєчасно діагностувати не лише середостінну гемангіому, але й КА – потенційно життєзагрозливу патологію.

Отже, пацієнти з гемангіомами будь-якої локалізації потребують комплексного обстеження для виявлення можливих супутніх аномалій, зокрема, судин дуги аорти, головного мозку, синдрому PHACES, а хворі з гемангіомами на тулубі – проведення КТ для заперечення середостінної гемангіоми.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

REFERENCES/ЛІТЕРАТУРА

1. AbouZeid AA, Mohammad SA, Aly HG, Ragab IA. (2021, Jan). Posterior Mediastinal and Cutaneous Back Hemangiomas in Infants: A New Association. *European J Pediatr Surg Rep.* 9(1): e37-e40. Epub 2021 May 12. doi: 10.1055/s-0040-1721408. PMID: 34007781; PMCID: PMC8116171.
2. Andreassi MG and Della Corte A, Genetics of bicuspid aortic valve aortopathy. *Curr Opin Cardiol.* 2016. 31(6): p. 585–592.
3. Ceyhan M, Elmali M, Yildiz L. (2008). Mediastinal Hemangioma and Accompanying Aortic Arch Anomaly. *Pediatr Cardiol.* 29: 867-869. <https://doi.org/10.1007/s00246-007-9192-x>.
4. Das KM, Ahmed AM, Aljubab A, Alzoum MA. (2013). Multidetector computed tomography evaluation of cavernous haemangioma of the azygous vein. *Interact Cardiovasc Thorac Surg.* 17(2): 436-437.
5. Feinberg SB. (1957). Posterior mediastinal hemangioma. *Radiology.* 68(1): 90-93.
6. Fink C, Peuster M, Hausdorf G. (2000). Endovascular stenting as an emergency treatment for neonatal coarctation. *Cardiol Young.* 10: 644-646.
7. Ishii K, Maeda K, Hashihira M, Miyamoto Y, Kanegawa K, Kusumoto M et al. (1990). MRI of mediastinal cavernous hemangioma. *Pediatr Radiol.* 20(7): 556-557.
8. Kenny D, Hijazi ZM. (2011). Coarctation of the aorta: from fetal life to adulthood. *Cardiol J.* 18(5): 487-495.
9. Kim YY, Andrade L, Cook SC. (2020). Aortic Coarctation. *Cardiol Clin.* 38(3): 337-351.
10. Mardani P, Kamran H, Geramizadeh B et al. (2023). Cavernous mediastinal hemangioma presenting with persistent cough: a rare case report and review of literature. *J Cardiothorac Surg.* 18: 3. <https://doi.org/10.1186/s13019-023-02130-7>.
11. Matitiau A, Birk E, Schonfeld T, Zalstein E, Berant M, Bruckheimer E. (2002). Stent implantation for long-segment coarctation of aorta in infant with facial and mediastinal hemangioma. *Cathet. Cardiovasc. Intervent.* 55: 510-512. <https://doi.org/10.1002/ccd.10158>.
12. Mineo TC, Biancari F, Cristino B, D'Andrea V. (1995). Benign vascular tumours of the mediastinum: presentation of three cases and review of the literature. *Thoraci Cardiovasc Surg.* 43(6): 361-364.
13. Moran CA, Suster S. (1995). Mediastinal hemangiomas: a study of 18 cases with emphasis on the spectrum of morphological features. *Hum Pathol.* 26(4): 416-421.
14. Nicholson GT, Kelleman MS, De la Uz CM, Pignatelli RH, Ayres NA, Petit CJ. (2017, May). Late outcomes in children with Shone's complex: a single-centre, 20-year experience. *Cardiol Young.* 27(4):697-705. Epub 2016 Jul 26. doi: 10.1017/S1047951116001104. PMID: 27456367.
15. Prada F, Mortera C, Bartrons J, Rissech M, Jiménez L, Carretero J et al. (2010, Nov). Complex aortic coarctation and PHACE syndrome. *Rev Esp Cardiol.* 63(11):1367-1370. doi: 10.1016/s1885-5857(10)70261-9. PMID: 21070732.
16. Rodríguez Bandera AI, Sebaratnam DF, Wargon O, Wong LF. (2021, Dec). Infantile hemangioma. Part 1: Epidemiology, pathogenesis, clinical presentation and assessment. *J Am Acad Dermatol.* 85(6): 1379-1392. Epub 2021 Aug 19. doi: 10.1016/j.jaad.2021.08.019. PMID: 34419524.
17. Rosenberg D. (1962). Hemangioma of the mediastinum. *Am J Surg.* 103(6): 749-754.
18. Rotaru N, Maliga O, Crivcheanschi M, Codreanu I, Repin O, Munteanu A. (2016). Mediastinal cavernous hemangioma in a child with pulmonary hypertension. 1: Article 1086.
19. Saliccioli KB, Zachariah JP. (2023, Oct). Coarctation of the Aorta: Modern Paradigms Across the Lifespan. *Hypertension.* 80(10): 1970-1979. Epub 2023 Jul 21. doi: 10.1161/HYPERTENSIONAHA.123.19454. PMID: 37476999; PMCID: PMC10530495.
20. Taşoğlu İ, Özışık K, Küçük ŞA, Sert D, Mavıtaş B, Paç M. (2011, Nov). Aortic coarctation in the presence of capillary hemangioma. *Ann Vasc Surg.* 25(8): 1143.e7-9. Epub 2011 Jul 20. doi: 10.1016/j.avsg.2011.05.002. PMID: 21764546.
21. Vaillant L, Lorette G, Chantepie A et al. (1988). Multiple cutaneous hemangiomas and coarctation of the aorta with right aortic arch. *Pediatrics.* 88: 707-710.

Відомості про авторів:

Мальська Андріана Андріївна – к.мед.н., доц. каф. пропедевтики педіатрії та медичної генетики ЛНМУ ім. Д. Галицького. Адреса: м. Львів, вул. Лисенка, 31а. <https://orcid.org/0000-0003-3484-153X>.

Куриляк Ольга Борисівна – к.мед.н., обл. дитячий кардіолог КНП ЛОР «Центр дитячої медицини «ОХМАТДИТ»». Адреса: м. Львів, вул. Лисенка, 31. <https://orcid.org/0000-0002-0441-6236>.

Стогова Олена Василівна – лікар ультразвукової діагностики, дитячий кардіолог, ст.н.с. Українського дитячого кардіологічного центру. ДУ «Науково-практичний медичний центр дитячої кардіології та кардіохірургії МОЗ України». Адреса: м. Київ, вул. В. Чорновола, 28/1. <https://orcid.org/0000-0002-6865-6714>.

Таммо Раад – д.філос., радіолог відділення променевої діагностики ДУ «Науково-практичний медичний центр дитячої кардіології та кардіохірургії МОЗ України». Адреса: м. Київ, вул. В. Чорновола, 28/1. <https://orcid.org/0000-0001-7506-9449>.

Мальований Богдан Ярославович – к.мед.н., дитячий хірург КНП ЛОР «Центр дитячої медицини «ОХМАТДИТ»». Адреса: м. Львів, вул. Лисенка, 31. <https://orcid.org/0009-0004-1070-587X>.

Стаття надійшла до редакції 22.03.2025 р., прийнята до друку 10.09.2025 р.