

GERAI DIFERENCIJUOTOS LIPOSARKOMOS DIAGNOSTIKA IR GYDYMAS PETIES NERVŲ REZGINIO SRITYJE

Paulius Dobrovolskis¹, Giedrė Stundžaitė-Baršauskienė²

¹ *Vilniaus universitetas, Medicinos fakultetas,*

² *Vilniaus universiteto ligoninė Santaros klinikos, Plastinės ir rekonstrukcinės chirurgijos centras*

Raktažodžiai: gerai diferencijuota liposarkoma, peties nervų rezginys, peties nervų rezginio navikai.

Santrauka

Darbo tikslas. Atlikti mokslinės literatūros analizę ir pateikti gerai diferencijuotos liposarkomos, esančios peties nervų rezginio srityje, diagnostikos, gydymo ir problematikos analizę.

Medžiaga ir metodai. Apžvelgta mokslinė literatūra, aprašanti gerai diferencijuotos liposarkomos, esančios peties nervų rezginio srityje, chirurginio gydymo ypatumus. Mokslinė literatūros paieška atlikta Pubmed duomenų bazėje.

Rezultatai. Analizuota 19 mokslinės literatūros straipsnių, aprašančių gerai diferencijuotos liposarkomos ir kitų navikų, esančių peties nervų rezginio srityje, gydymo ypatumus.

Išvados. Tinkamą peties nervų rezginio srities navikų gydymo taktiką pasirinkimą sunkina mokslinių duomenų stygius, o chirurginis gydymas techniškai ypač sudėtingas. Pagrindinis gydymo metodas turi būti operacinis, siekiant išsaugoti aplinkines struktūras. Būtinai detalus priešoperacinis planavimas, delikati operacinė technika, rekomenduojama intraoperacinė nervų rezginio elektrofiziologinė ir ultragarsinė kontrolė.

Įvadas

Dėl sparčiai ilgėjančios gyvenimo trukmės ir pagerėjusių diagnostikos galimybių visame pasaulyje kiekvienais metais diagnozuojama vis daugiau onkologinių susirgimų [1]. Liposarkomos – piktybiniai riebalinio audinio navikai, sudarantys apie 20 proc. visų minkštųjų audinių navikų, o gerai diferencijuota liposarkoma (GDL) sudaro net apie 50 proc. visų diagnozuojamų liposarkomų [2,3].

Gydymas galūnėse remiasi radikalia naviko ekscizija ir, jei reikia, taikoma radioterapija, tačiau šie gydymo metodai nėra lengvai įgyvendinami visose anatomicinėse zonose [4].

Viena iš tokių zonų, kurioje radikali chirurgija ir radioterapija kelia ypač daug iššūkių – peties nervų rezginio sritis. Analizuotoje literatūroje aprašyti tik pavieniai liposarkomos, lokalizuotos peties nervų rezginio srityje, atvejai [5,6]. Atsiranda poreikis apžvelgti ir susisteminti tokių atvejų gydymui aktualią mokslinę literatūrą. Šiame darbe atliekama mokslinės literatūros apie nervų rezginio srityje esančių riebalinių navikų diagnostiką ir chirurginį gydymą analizė.

Tyrimo tikslas – atlikti mokslinės literatūros analizę ir pateikti gerai diferencijuotos liposarkomos, esančios peties nervų rezginio srityje, diagnostikos, gydymo ir problematikos analizę.

Tyrimo objektas ir metodas

Apžvelgta mokslinė literatūra, aprašanti gerai diferencijuotos liposarkomos, esančios peties nervų rezginio srityje, chirurginio gydymo ypatumus. Mokslinės literatūros paieška atlikta PubMed duomenų bazėje.

Tyrimo rezultatai ir jų aptarimas

Analizuota 19 mokslinės literatūros straipsnių, aprašančių gerai diferencijuotos liposarkomos ir kitų navikų, esančių peties nervų rezginio srityje, gydymo ypatumus.

Nepaisant naviko tipo, peties nervų rezginio sritis dėl savo anatominių ypatumų yra nemenką chirurginį iššūkį kelianti zona. Čia išsidėsto funkciškai ir net gyvybiškai svarbios struktūros: poraktinė, pažastinė arterijos ir venos, peties nervų rezginys ir jo šakos, įskaitant diafragminį nervą [7]. Be naviko pašalinimo, gydymo tikslas yra ir šių struktūrų vientisumo išsaugojimas.

Jeigu navikas apima šios srities nervus ir (ar) kraujagysles, plačios ekscizijos galimybės nepažeidžiant sveikų audinių labai ribotos ir techniškai sudėtingos. Ekscizijos galimybės priklauso nuo naviko tipo, dydžio, sąlyčio su aplinkinėmis struktūromis. Įprastai, geriausiu atveju pasiekiami tik lipocitinio naviko „išlukštenimo“ (angl. shelling-out). Neretai, siekiant išsaugoti nervines struktūras, tenka naviką padalyti [8].

Literatūroje pabrėžiama, kad sėkmingam operaciniam gydymui kritiškai svarbios išsamios peties nervų rezginio anatomicinės žinios, ypač atsižvelgiant į faktą, kad navikas dažnai iškraipo klasikinę anatomicinę rezginio topografinę anatomiją [5].

Rezginio srities navikų įvairovė. Tikslių statistinių duomenų apie skirtingų navikų dažnį peties rezginio srityje nėra, tačiau navikų įvairovė šioje srityje plati: didžiąją dalį sudaro gerybiniai navikai – lipomos ir švanomos, aprašytos tik pavienės liposarkomos, iš kurių vos 2 – gerai diferencijuotos. Aprašomi ir hibernomų, neurofibromų, neurofibrosarkomų atvejai [5,8–12].

Operacinė taktika. Planuojant GDL chirurginį gydymą, dėl GDL ir lipomos panašumų iš dalies galima vadovautis žiniomis apie lipomų chirurgiją. Literatūroje galima rasti pavienių sisteminių literatūros apžvalgų apie lipomų chirurginį gydymą peties rezginio srityje [13], gausu individualių atvejų aprašymų [5,11,14,15].

Ištyrimas ir operacijos apimties planavimas. Sėkmingam operaciniam rezultatui pasiekti, būtinas atitinkamas priešoperacinis ištyrimas. Šiuolaikinėje medicinoje neatsiejamas bet kurio naviko operacijos planavimo etapas yra vaizdinis tyrimas: lipocitinių rezginio srities navikų atveju svarbiausias yra MRT įvertinimas, rekomenduojamas ir ultragarsinis tyrimas [13,16]. Teigiama, kad naudingos informacijos gali suteikti elektrofiziologiniai tyrimai. Kai kurių autorių nuomone, jie padeda įvertinti ir subklinikinį nervų pažeidimą [16], tačiau įrodymų tokiems teiginiams nepateikiama.

Chirurginis pjūvis. Tinkamiausias pjūvis priklauso nuo naviko lokalizacijos: literatūroje aprašomi priekinis viršraktikaulinis, poraktikaulinis, užpakalinis pomentinis ir pažastinis pjūviai [13,16]. Viršraktikaulinis pjūvis įprastai naudojamas šaknelių, kamienų ir šakų lygio peties nervų rezginio navikų ekscizijų metu. Poraktikaulinis (deltopektoralinis) pjūvis patogesnis pasiekti šakų, pluoštų ir terminalinių šakų lygio navikus [16].

Operacinė technika. Operacinė technika šioje srityje taip pat išskirtinė – siekiant neurovaskulinių struktūrų išsaugojimo, naudojama mikrochirurginė technika ir optinis padidinimas. Kai kurie autoriai rekomenduoja intraoperacinio ultragarsinio tyrimo taikymą ir periferinių nervų atsako intraoperacinį elektrofiziologinį stebėjimą, o kai kuriais atvejais net intraoperacinį sukeltųjų somatosensorinių potencialų tyrimą [8,13,16].

Rezultatai. Nepaisant sudėtingų anatomijos nulemtų sąlygų, lipomų operaciniai rezultatai sąlyginai geri: pašalinus navikus, įprastai išnyksta varginę simptomai, o susirgimas įprastai neatsinaujina [5,13,16]. GDL būdinga aukšta vietinio atsinaujinimo rizika, tačiau peties rezginio srityje atsinaujinimo dažnis nežinomas, nes aprašyti vos keli GDL atvejai

rezginio srityje [5,6], tačiau numanoma atsinaujinimo rizika yra aukštesnė, nei kitų lokalizacijų, kuriose įmanoma radikali darinio ekscizija.

Komplikacijos. Nors ir nėra patikimų statistinių duomenų apie pooperacinių komplikacijų dažnį atliekant lipocitinių navikų ekscizijas peties rezginio srityje, tokių komplikacijų rizika labai aukšta. Literatūroje aprašomi rezginio pažeidimo atvejai šalinant navikus, iš jų dažniausiai minimas *neurapraxia* laipsnio pakenkimas, pasireiškiantis laikinu inervuojamų raumenų silpnumu [6]. Tokio pažeidimo dažnis itin didelis – literatūroje aprašytų atvejų serijoje, po peties nervų rezginio navikų šalinimo, laikinas raumenų silpnumas pasireiškė visiems 14 operuotų pacientų [8]. Ekscizijos metu nepavykus išsaugoti nervų vientisumo, aprašomos rankos funkcijos grąžinimo operacijos – distalinių nervų ar sausgyslių transpozicijos [8]. Aprašytas ir retas kompleksinio regioninio skausmo sindromo išsivystymas po lipomos, spaudusios peties nervų rezginį, ekscizijos [17].

Radioterapijos vaidmuo. Radioterapijos vaidmuo navikui esant rezginio srityje – nežinomas ir stipriai diskutuotinas. GDL adjuvantinį radioterapinį galūnių gydymą rekomenduojama svarstyti tik nesant R0 ekscizijos.

Dėl sudėtingų anatominių sąlygų ir įprastai neįmanomos radikali ekscizijos, radioterapinis gydymas veikiausiai sumažintų ligos atsinaujinimo riziką, tačiau yra gerai žinomas neigiamas radioterapijos poveikis periferiniams nervams ir ypač nervų rezginiui. Po radioterapinio gydymo gali išsivystyti radiacijos sukelta peties nervų rezginio neuropatija (angl. radiation-induced brachial plexus neuropathy, RIBPN), dažniausiai pasitaikanti po krūties onkologinių susirgimų gydymo radioterapija [18]. RIBPN gydymas ypač komplikotas ir apima sudėtingas chirurgines intervencijas, tokias kaip rezginio mikroneurolizė (epineurotomija) ar neurolizė ir padengimas laisvu taikinės lopu (siekiant sumažinti randėjimą) [19]. Svarstant radioterapijos naudos ir žalos santykį, sprendimas taikyti radioterapiją turi būti individualus. Įrodymais pagrįstos informacijos tokiam sprendimui šiuo metu nepakanka.

Išvados ir rekomendacijos

1. Tinkamą peties nervų rezginio srities navikų gydymo taktiką pasirinkimą sunkina mokslinių duomenų stygius. Šios srities navikų chirurginis gydymas techniškai ypač sudėtingas.

2. Nors tokie atvejai labai reti, tačiau esant riebaliniam dariniui petinio nervų rezginio zonoje, GDL turėtų būti įtraukiama į diferencinę diagnostiką.

3. Būtinas detalus visų darinių nervų rezginio zonoje MRT ištyrimas.

4. Pagrindinis GDL gydymo metodas turi būti operaci-

nis, siekiant bent R1 lygio ekscizijos ir aplinkinių struktūrų išsaugojimo.

5. Būtinai detalus priešoperacinis planavimas, delikati operacinė technika, rekomenduojama intraoperacinė nervų rezginio elektrofiziologinė ir ultragarsinė kontrolė.

6. Adjuvantinės radioterapijos indikacijos nėra žinomos, o dėl radiacijos sukeltos peties nervų rezginio neuropatijos rizikos radioterapija turi būti taikoma labai atsargiai ir individualizuotai.

Literatūra

- WHO. Latest global cancer data: Cancer burden rises to 18.1 million new cases and 9.6 million cancer deaths in 2018. 2018;3.
- Kransdorf MJ. Malignant soft-tissue tumors in a large referral population: distribution of diagnoses by age, sex, and location. *AJR Am J Roentgenol* 1995;164(1):129-34. <https://doi.org/10.2214/ajr.164.1.7998525>
- Peterson JJ, Kransdorf MJ, Bancroft LW, O'Connor MI. Malignant fatty tumors: classification, clinical course, imaging appearance and treatment. *Skeletal Radiol* 2003;32(9):493-503. <https://doi.org/10.1007/s00256-003-0647-8>
- Thway K. Well-differentiated liposarcoma and dedifferentiated liposarcoma: An updated review. *Semin Diagn Pathol* 2019;36(2):112-21. <https://doi.org/10.1053/j.semdp.2019.02.006>
- Graf A, Yang K, King D, Dzwierzynski W, Sanger J, Hettinger P. Lipomas of the Brachial Plexus: A Case Series and Review of the Literature. *Hand (N Y)* 2019;14(3):333-8. <https://doi.org/10.1177/1558944717735946>
- Kosutic D, Gajanan K. Rare case of a liposarcoma in the brachial plexus. *Ann R Coll Surg Engl* 2016;98(7):e106-8. <https://doi.org/10.1308/rcsann.2016.0141>
- Pejkova S, Filipce V, Peev I, Nikolovska B, Jovanoski T, Georgieva G, et al. Brachial Plexus Injuries - Review of the Anatomy and the Treatment Options. *Pril (Makedon Akad Nauk Umet Odd Med Nauki)* 2021;42(1):91-103. <https://doi.org/10.2478/prilozi-2021-0008>
- Gaba S, Mohsina S, John JR, Tripathy S, Sharma RK. Clinical Outcomes of Surgical Management of Primary Brachial Plexus Tumors. *Indian J Plast Surg* 2021;54(2):124-9. <https://doi.org/10.1055/s-0041-1731252>
- Zapałowicz K, Radek A, Łyczak P, Błaszczczyk B, Skiba P. [Brachial plexus tumors]. *Neurol Neurochir Pol* 2002;36(4):697-710.
- Saifuddin A. Imaging tumours of the brachial plexus. *Skeletal Radiol* 2003;32(7):375-87. <https://doi.org/10.1007/s00256-003-0618-0>
- Guha D, Kiehl TR, Guha A. Lipoma compressing the brachial plexus in a patient with sarcoidosis: case report. *Br J Neurosurg*. 2011;25(4):530-1. <https://doi.org/10.3109/02688697.2011.554584>
- Giner J, Isla A, Hernández B, Nistal M. [Myxoid/round cell liposarcoma of the brachial plexus]. *Neurocirugia (Astur)* 2014;25(6):290-3. <https://doi.org/10.1016/j.neucir.2014.06.003>
- Gembruch O, Ahmadipour Y, Chihi M, Dinger TF, Rauschenbach L, Pierscianek D, et al. Lipomas as an Extremely Rare Cause for Brachial Plexus Compression: A Case Series and Systematic Review. *J Brachial Plex Peripher Nerve Inj* 2021;16(1):e10-6. <https://doi.org/10.1055/s-0041-1726087>
- Lee YJ, Jeong YJ, Lee JH, Jun YJ, Kim YJ. Liposarcoma in the axilla developed from a longstanding lipoma. *Arch Plast Surg* 2014;41(5):600-2. <https://doi.org/10.5999/aps.2014.41.5.600>
- Sul J, Lim J, Kang SK, Choi SW, Kwon HJ, Youm JY. Thoracic Outlet Syndrome Induced by Huge Lipoma: A Case Report. *Korean J Neurotrauma* 2019;15(1):67-71. <https://doi.org/10.13004/kjnt.2019.15.e9>
- Huang JH, Zaghoul K, Zager EL. Surgical management of brachial plexus region tumors. *Surg Neurol* 2004;61(4):372-8. <https://doi.org/10.1016/j.surneu.2003.08.006>
- Patel RH, Sheth R, Hus N. Complex Regional Pain Syndrome Caused by an Axillary Lipoma. *Cureus* 2020;12(12):e12280. <https://doi.org/10.7759/cureus.12280>
- Warade AC, Jha AK, Pattankar S, Desai K. Radiation-induced brachial plexus neuropathy: A review. *Neurol India* 2019;67(Supplement):S47-52. <https://doi.org/10.4103/0028-3886.250704>
- de Oliveira AJM, Castro JP de S, Foroni LH, Siqueira MG, Martins RS. Treatment of radiation-induced brachial plexopathy with omentoplasty. *Autops Case Rep* 2020;10(3):e2020202. <https://doi.org/10.4322/acr.2020.202>

MANAGEMENT OF WELL-DIFFERENTIATED LIPOSARCOMA OF THE BRACHIAL PLEXUS

P. Dobrovolskis, G. Stundžaitė-Baršauskienė

Keywords: well-differentiated liposarcoma; brachial plexus; brachial plexus tumors.

Summary

Objective. To review the diagnostics and possible surgical treatment of a well-differentiated liposarcoma located in the area of the brachial plexus described in the scientific literature.

Materials and methods. A review of the scientific literature analysing the surgical treatment of a well-differentiated liposarcoma located in the area of the brachial plexus. Literature search was performed using PubMed resources.

Results. 19 scientific papers were analysed, describing the diagnostics and surgical treatment features of a well-differentiated liposarcoma and other tumors located in the area of the brachial plexus.

Conclusions. The appropriate treatment of tumors in the region of the brachial plexus is complicated by the lack of scientific data, while surgical treatment is extremely difficult. The main method of treatment must be surgical and surrounding structures must be preserved. Detailed preoperative planning, delicate surgical technique is necessary, intraoperative electrophysiological and ultrasound control of the plexus brachialis is recommended.

Correspondence to: paulius.dob@gmail.com