

<https://doi.org/10.52889/1684-9280-2024-2-72-20-24>

УДК 616-089.23; 616-001
МРНТИ 76.29.41

Описание клинического случая

Лангергансоклеточный гистиоцитоз в теле L5 позвонка: Клинический случай

[Петренко Р.А.](#)¹, [Мохаммади М.Т.](#)², [Пустовойтов К.В.](#)³, [Залепугин С.Д.](#)⁴

¹ Врач-нейрохирург нейрохирургического отделения №1, Республиканский научно-практический центр травматологии и ортопедии, Минск, Беларусь. E-mail: Lang3rgans@gmail.com

² Ведущий научный сотрудник лаборатории клинической морфологии, Республиканский научно-практический центр травматологии и ортопедии, Минск, Беларусь. E-mail: bsmti@bsmti.by

³ Ведущий научный сотрудник лаборатории повреждений и заболеваний позвоночника и спинного мозга, Республиканский научно-практический центр травматологии и ортопедии, Минск, Беларусь. E-mail: kirill.doc@mail.ru

⁴ Нейрохирург нейрохирургического отделения №1, Республиканский научно-практический центр травматологии и ортопедии, Минск, Беларусь. E-mail: profmed@profmed.by

Резюме

Из-за достаточно низкой частоты встречаемости лангергансоклеточного гистиоцитоза стандартный протокол лечения в настоящее время отсутствует. Выбор подходящего метода лечения является сложной задачей, так как тактика лечения может варьировать от динамического наблюдения до радикального хирургического вмешательства.

В данной статье мы делимся своим опытом лечения ребенка 7 лет с эозинофильной гранулемой тела L5 позвонка, которому была проведена открытая биопсия образования с последующей транспедикулярной фиксацией. После проведения транспедикулярной биопсии очага, с последующей транспедикулярной фиксацией, верифицирован диагноз лангергансоклеточный гистиоцитоз.

Применение метода транспедикулярной фиксации наряду с открытой биопсией очага для верификации диагноза позволило предотвратить развитие патологического перелома L5 позвонка, достигнуть полного костного ремоделирования очага с регрессом всех жалоб пациента в раннем и отдаленном послеоперационном периодах.

Ключевые слова: лангергансоклеточный гистиоцитоз, остеолитический очаг, поясничный отдел позвоночника, хирургия.

Corresponding author: Roman Petrenko, Neurosurgeon of Neurosurgical department №1, Republican Scientific and Practical Center of Traumatology and Orthopaedics, Минск, Беларусь.
Postal code: 220024
Address: Republic of Belarus, Minsk, Lieutenant Kizhevatov str. 60, building 4
Phone: 8 (017) 311-10-90
E-mail: Lang3rgans@gmail.com

J Trauma Ortho Kaz 2 (72) 2024: 20-24
Recieved: 18-03-2024
Accepted: 27-04-2024



This work is licensed under a Creative Commons Attribution 4.0 International License

Введение

Лангергансоклеточный гистиоцитоз (ЛКГ) — редкое клональное пролиферативное заболевание, характеризующееся инфильтрацией одного или несколькими органами клетками Лангерганса (КЛ) и другими иммунными эффекторными клетками с образованием гранулем [1,2]. Распространенность ЛКГ составляет 1 случай на 1,5 миллиона населения [3]. Частота поражения позвоночника при данной патологии варьируется от 6,55 до 25% случаев поражений костей [4]. При поражении позвоночника 54% приходится на грудной отдел, 35% на поясничный отдел и 11% на шейный отдел [5].

Самое первое описание ЛКГ — случая эозинофильной гранулемы, сделано Т. Smith (1865 г.). Приоритет в русскоязычной литературе об эозинофильной гранулемы принадлежит Н.И. Таратынову (1913 г.). В 1940 году L. Lichtenstein и Н. Jaffe ввели новый термин «гистиоцитоз Х», оставшийся в литературе до настоящего времени [6].

Описание клинического случая

Пациент В., возраст 7 лет, обследовался по поводу жалоб на боли в поясничной области, общую слабость, быструю утомляемость при нагрузках. Факт предшествующей травмы не отмечает. После выполнения рутинной спондилографии поясничного отдела позвоночника был направлен в Республиканский научно-практический центр травматологии и ортопедии (Минск, Беларусь) с подозрением на патологический перелом тела L5 для уточнения диагноза и определения тактики дальнейшего лечения. В ходе осмотра неврологического дефицита не выявлено. Результаты

Следующим этапом в изучении проблемы явилась публикация французских патологов С. Nezelovetal (1973 г.) о том, что гистиоцитоз Х - результат пролиферации и диссеминирования патологических гистиоцитарных клеток, идентифицируемых как КЛ, и предложили переименовать его в ЛКГ [7].

Из-за достаточно низкой частоты встречаемости данной патологии стандартный протокол лечения ЛКГ в настоящее время отсутствует. Выбор подходящего метода лечения данной патологии является сложной задачей, так как тактика лечения может варьировать от динамического наблюдения до радикального хирургического вмешательства.

В данной статье мы делимся своим опытом лечения ребенка 7 лет с эозинофильной гранулемой тела L5 позвонка, которому была проведена открытая биопсия образования с последующей транспедикулярной фиксацией.

клинико-лабораторных исследований в норме. Пациенту была проведена компьютерная томография (КТ) поясничного отдела позвоночника, на которой выявлен очаг литического поражения тела L5 позвонка с переходом на корень дуги позвонка (Рисунок 1 а, б). По данным магнитно-резонансной томографии (МРТ) поясничного отдела позвоночника выявлен очаг пониженной интенсивности сигнала в T1-режиме, и повышенной интенсивности сигнала в T2-режиме в теле L5 позвонка (Рисунок 2 а, б, с, d).

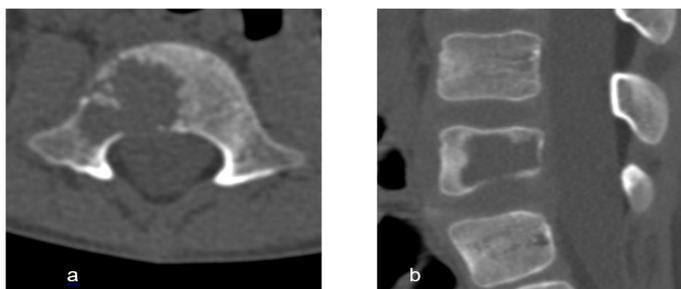


Рисунок 1 - Литический очаг в теле L5 позвонка на аксиальной (а) и сагиттальной (б) проекциях при КТ поясничного отдела позвоночника

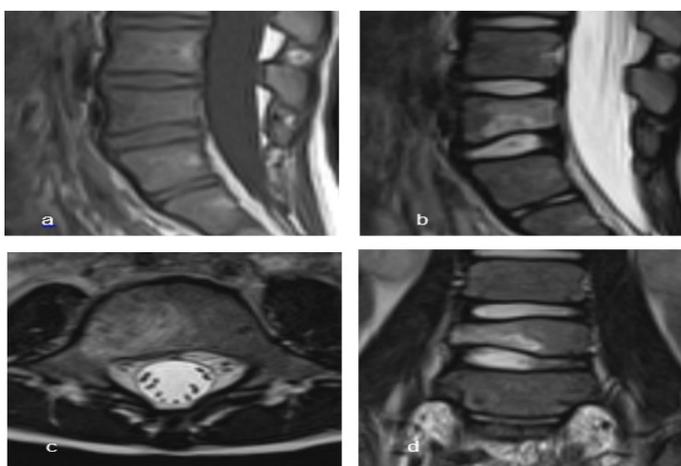


Рисунок 2 - Очаг пониженной интенсивности сигнала по данным МРТ в T1-режиме (а), и повышенной интенсивности сигнала в T2-режиме (б, с, d) в теле L5 позвонка

Далее пациенту была проведена открытая транспедикулярная биопсия очага в теле L5 справа с последующей транспедикулярной фиксацией L4-S1 с целью предотвращения развития патологического перелом L5 позвонка (Рисунок 3 а, б).

При макроскопическом исследовании операционный материал, полученный из тела L5 позвонка, был представлен мелкими фрагментами губчатой кости с прилежащей мягкой тканью размером до 5мм в диаметре. При гистологическом исследовании материала, окрашенного гематоксилином и эозином, были обнаружены мелкие фрагменты губчатой костной ткани с признаками некробиотических

изменений и патологического лизиса, а также фрагменты межпозвонкового диска с замыкательной костной пластинкой. В межбалочных пространствах губчатой кости имелись очаги скопления гематогенной опухолевой ткани, состоящей из крупных округлых или полигональных гистиоцитарных клеток с эозинофильной цитоплазмой, большим бобовидным ядром и воспалительной инфильтрацией с наличием сегментоядерных лейкоцитов (эозинофилы, нейтрофилы), лимфоцитов, плазмоцитов и единичных гигантских многоядерных клеток.

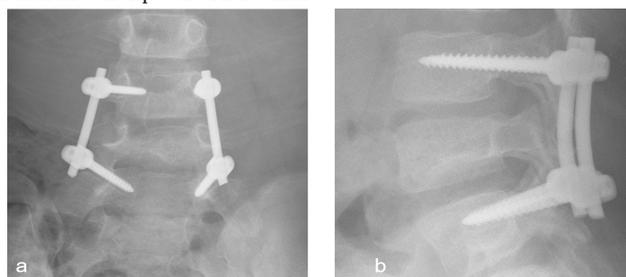


Рисунок 3 - Спондилография поясничного отдела позвоночника в прямой (а) и боковой (б) проекциях, выполненная в раннем послеоперационном периоде

Поражение, имело гранулематозный характер распределения клеток в межбалочных пространствах поврежденных участков губчатой кости. На основании обнаруженных гистологических признаков был выставлен диагноз ГКЛ L4 позвонка и указана необходимость проведения иммуногистохимической верификации генеза описанных клеток. Были проведены исследования с антителами к CD1a, S100, Vimentin, CD45 и Cytokeratin. Окраска с S100 и Vimentin показала выраженную экспрессию данных биологических маркеров в гистиоцитах. При применении иммуногистохимического исследования с CD45 была отмечена положительная экспрессия в

отдельных лимфоцитоподобных клетках. Окраска с Cytokeratin имела отрицательную иммунную реакцию. При иммуногистохимической окраске с CD1a отмечалась единичная иммунопозитивная реакция в описанных КЛ. После получения результатов, проведенных иммуногистохимических исследований, учитывая описанную морфологическую картину и клинико-радиологические данные, был сформулирован окончательный диагноз: Лангергансоподобный гистиоцитоз (эозинофильная гранулема) L5 (Рисунок 4).

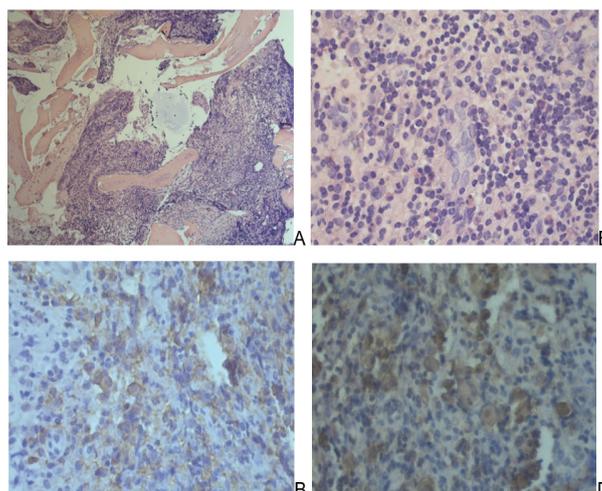


Рисунок 4 - Микрофотографии операционного материала пациента В, 7 лет

- А – На малом увеличении видны костные балки в состоянии некробиотических изменений, в межбалочных пространствах отмечается очаговое скопление инфильтративных клеток. Окраска Г&Э. Увеличение $\times 100$.
- Б – На большом увеличении, на ряду с эозинофилами, плазмоцитами, лимфоцитами и макрофагами, видны большие клетки гистиоциты с бобовидными ядрами и сиреневой цитоплазмой. Окраска Г&Э. Увеличение $\times 680$.
- В – Иммуногистохимическая окраска с антителами к CD1a. Отмечается иммунопозитивная экспрессия в клетках Лангерганса. Увеличение $\times 400$.
- Г – Иммунопозитивная иммуногистохимическая окраска с антителами к S-100. Увеличение $\times 400$

На первые сутки после оперативного вмешательства пациент был вертикализирован в пояснично-крестцовом ортезе. Выписан на амбулаторное лечение на 10 сутки после операции с рекомендациями по ограничению нагрузок на

поясничный отдел позвоночника в течении одного месяца после операции. Через 12 месяцев после операции у пациента отмечается полное костное ремоделирование очага в теле L5 позвонка по данным КТ (Рисунок 5 а, б).

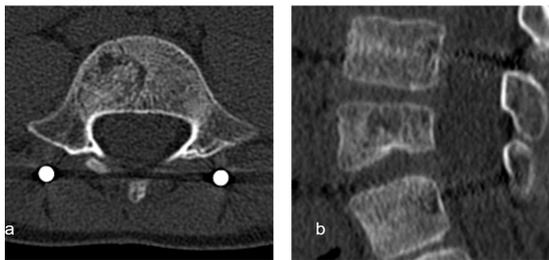


Рисунок 5 - Костное ремоделирование очага в теле L5 позвонка на аксиальной (а) и сагиттальной (б) проекциях при КТ поясничного отдела позвоночника

Обсуждение

Дифференциальную диагностику ЛКГ необходимо проводить с аневризмальными костными кистами, остеобластомой и плазмацитомой [8,9].

Рутинные методы радиологического исследования, такие как рентгенография позвоночника, КТ и МРТ помогают обнаружить патологические изменения в костной ткани, но не могут дифференцировать ЛКГ от других остеолитических опухолей.

Точный диагноз ЛКГ во многом зависит от гистологического исследования [10].

Выводы

Применение метода транспедикулярной фиксации наряду с открытой биопсией очага для верификации диагноза позволило предотвратить развитие патологического перелома L5 позвонка, достигнуть полного костного ремоделирования очага с регрессом всех жалоб пациента в раннем и отдаленном послеоперационном периодах.

Конфликт интересов. Отсутствует

Вклад авторов. Концептуализация – Р.П., К.П.; методология – Р.П., Т.М., С.З.; проверка – К.П.;

Литература

1. Badalian-Very G, Vergilio J.A, Fleming M, Rollins B.J. Pathogenesis of Langerhans cell histiocytosis. *Annu Rev Pathol.* 2013; 8: 1-20. [\[Crossref\]](#)
2. Egeler R.M., Nesbit M.E. Langerhans cell histiocytosis and other disorders of monocyte-histiocyte lineage. *Crit Rev Oncol Hematol.* 1995; 18(1): 9-35. [\[Crossref\]](#)
3. Zhong W.Q., Jiang L., Ma Q.J., Liu Z.J. et al. Langerhans cell histiocytosis of the atlas in an adult. *Eur Spine J.* 2010; 19: 19–22. [\[Crossref\]](#)
4. Peng X.S., Pan T., Chen L.Y., Huang G. et al. Langerhans' cell histiocytosis of the spine in children with soft tissue extension and chemotherapy. *Int Orthop.* 2009; 33(3): 731–736. [\[Crossref\]](#)
5. Abu-Bonsrah N., Goodwin C.R., Crane G.M., Abiola G. Langerhans cell histiocytosis of the cervical spine. *Spine J.* 2016; 16(1): e11–e12. [\[Crossref\]](#)
6. Coppes-Zantiga A., Egeler R.M. The Langerhans cell histiocytosis X files revealed. *Br J Haematol.* 2002; 116(1): 3-9. [\[Crossref\]](#)
7. Елькин В.Д., Седова Т.Г., Копытова Е.А., Плотникова Е.В. Лангергансоклочеточный гистиоцитоз (патология кожи и висцеральные поражения) // *Терапевтический архив.* - 2017. – Т. 89. - №4. – С. 115-120. [\[Crossref\]](#)
El'kin V.D., Sedova T.G., Kopytova E.A., Plotnikova E.V. Langergansokletochnyi gistiotsitoz (patologiya kozhi i vistseral'nye porazheniia) (Langerhans cell histiocytosis (skin pathology and visceral lesions)) [in Russian]. *Terapevticheskii arkhiv.* 2017; 89(4): 115-120. [\[Crossref\]](#)
8. Shi L.S., Li Y.Q., Wu W.J., Zhang Z.K. et al. Imaging appearance of giant cell tumour of the spine above the sacrum. *Br J Radiol.* 2015; 88(1051): 20140566. [\[Crossref\]](#)
9. Jiang G., Sun L.L., Ye Y.J., Yang Z.T. et al. Giant cell tumors of the mobile spine with invasion of adjacent vertebrae: an unusual imaging finding. *BMC Musculoskelet Disord.* 2021; 22(1): 726. [\[Crossref\]](#)
10. Ladisch S. Langerhans cell histiocytosis. *Curr Opin Hematol.* 1998; 5(1): 54–8. [\[Crossref\]](#)

На данный момент не существует единого мнения по тактике лечения ЛКГ и существует ряд подходов, включающих хирургическое лечение, химиотерапию, лучевую терапию, применение моноклональных антител и даже применение нестероидных противовоспалительных препаратов [11-14]. Исходя из вышесказанного, выбор оптимального метода лечения каждого конкретного пациента является непростой задачей.

формальный анализ – Р.П., Т.М., К.П.; написание (оригинальная черновая подготовка) – Р.П., Т.М., написание (обзор и редактирование) – Р.П. Все авторы прочитали, согласились с окончательной версией рукописи.

Этические аспекты. У законного представителя пациента было взято письменное информированное согласие на распространение его медицинской информации.

11. Hassan B.W., Moon B.J., Kim Y.J., Kim S.D. et al. Langerhans cell histiocytosis in the adult lumbar spine: case report. *Spring*. 2016; 5(1): 1398. [[Crossref](#)]
12. Feng F, Tang H., Chen H., Jia P. et al. Percutaneous vertebroplasty for Langerhans cell histiocytosis of the lumbar spine in an adult: case report and review of the literature. *Exp Ther Med*. 2013; 5(1): 128–32. [[Crossref](#)]
13. Cantu M.A., Lupo P.J., Bilgi M., Hicks M.J. et al. Optimal therapy for adults with Langerhans cell histiocytosis bone lesions. *PLoS One*. 2012; 7(8): e43257. [[Crossref](#)]
14. Kelly K.M., Pritchard J. Monoclonal antibody therapy in Langerhans cell histiocytosis - feasible and reasonable? *Br J Cancer Suppl*. 1994; 23: S54–5. [[Google Scholar](#)]

L5 омыртқасындағы Лангерганс жасушалық гистиоцитозы: Клиникалық жағдай туралы есеп

[Петренко Р.А.](#)¹, [Мохаммади М.Т.](#)², [Пустовойтов К.В.](#)³, [Залепугин С.Д.](#)⁴

¹ №1 нейрохирургия бөлімшесінің нейрохирург дәрігері, Республикалық травматология және ортопедия ғылыми-практикалық орталығы, Минск, Белоруссия. E-mail: Lang3rgans@gmail.com

² Клиникалық морфология зертханасының жетекші ғылыми қызметкері, Республикалық травматология және ортопедия ғылыми-практикалық орталығы, Минск, Белоруссия. E-mail: bsmu@bsmu.by

³ Омыртқа және жұлынның жарақаттары мен аурулары зертханасының жетекші ғылыми қызметкері, Республикалық травматология және ортопедия ғылыми-практикалық орталығы, Минск, Белоруссия. E-mail: kirill.doc@mail.ru

⁴ №1 нейрохирургиялық бөлімшесінің нейрохирург дәрігері, Республикалық травматология және ортопедия ғылыми-практикалық орталығы, Минск, Белоруссия. E-mail: profmed@profmed.by

Түйіндеме

Лангерганс жасушаларының гистиоцитозының кездесу жиілігінің салыстырмалы түрде төмендігіне байланысты қазіргі уақытта стандартталған емдеу протоколы жоқ. Тиісті емдеу әдісін таңдау қиын мәселе болып табылады, себебі емдеу тактикасы динамикалық бақылаудан радикалды хирургияға дейін өзгеруі мүмкін.

Бұл мақалада біз L5 омыртқа денесінің Лангерганс жасушалық гистиоцитозы бар 7 жасар баланы емдеудегі тәжірибемізбен бөлістік. Науқасқа ошақтың ашық биопсиясынан кейін транспедикулярлық бекіту жасалып, Лангерганс жасушалық гистиоцитоз диагнозы расталды.

Диагнозды растау үшін зақымданған жердің ашық биопсиясымен бірге транспедикулярлық бекіту әдісін қолдану L5 омыртқасының патологиялық сынуының дамуын болдырмауға, сондай-ақ, науқастың барлық шағымдарының регрессиясына әкелген зақымданған сүйектің толық қайта құрылуына қол жеткізуге мүмкіндік берді.

Түйін сөздер: Лангерганс жасушалық гистиоцитоз, остеолитикалық зақымдану, бел омыртқасы, хирургиялық араласу.

Langerhans Cell Histiocytosis at L5 Vertebra: A Case Report

[Roman Pertrenko](#)¹, [Mohammad Mohammadi](#)², [Kiry Pustavoitau](#)³, [Sergey Zalepygin](#)⁴

¹ Neurosurgeon of Neurosurgical department №1, Republican Scientific and Practical Center of Traumatology and Orthopedics, Minsk, Belarus. E-mail: Lang3rgans@gmail.com

² Lead researcher of Laboratory clinical morphology Republican Scientific and Practical Center of Traumatology and Orthopedics, Minsk, Belarus. E-mail: bsmu@bsmu.by

³ Lead researcher of Laboratory spinal trauma and diseases Republican Scientific and Practical Center of Traumatology and Orthopedics, Minsk, Belarus. E-mail: kirill.doc@mail.ru

⁴ Neurosurgeon of Neurosurgical department №1, Republican Scientific and Practical Center of Traumatology and Orthopedics, Minsk, Belarus. E-mail: profmed@profmed.by

Abstract

Due to the relatively low incidence of Langerhans cell histiocytosis, there is currently no standard treatment protocol. Choosing the appropriate treatment method is a complex task, since treatment tactics can vary from dynamic observation to radical surgery.

In this article, we share our experience in treating a 7-year-old child with eosinophilic granuloma of the L5 vertebral body, who underwent open biopsy of the formation with subsequent transpedicular fixation. After transpedicular biopsy of the lesion, followed by transpedicular fixation, the diagnosis of Langerhans cell histiocytosis was verified.

The use of the transpedicular fixation method along with an open biopsy of the lesion to verify the diagnosis made it possible to prevent the development of a pathological fracture of the L5 vertebra, achieve complete bone remodeling of the lesion with regression of all patient complaints in the early and late postoperative periods.

Key words: Langerhans cell histiocytosis, osteolytic lesion, lumbar spine, surgery.