

## АНЕВРИЗМАЛЬНАЯ КОСТНАЯ КИСТА: СЛУЧАЙ ИЗ ПРАКТИКИ

Ш.А. Аул<sup>1</sup>, А.Г. Бобылев<sup>1</sup>, Т.М. Шогунбенков<sup>1</sup>, А.М. Газеев<sup>1</sup>, Е.А. Осипова<sup>1,2</sup>, А.В. Молькова<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>ГБУЗ НСО «Государственная Новосибирская областная клиническая больница»;

Россия, 630087 Новосибирск, ул. Немировича-Данченко, 130;

<sup>2</sup>ФГБОУ ВО «Новосибирский государственный медицинский университет» Минздрава России;

Россия, 630091 Новосибирск, Красный просп., 52

**Контакты:** Шалиндер Ашокович Аул aulbarnaul@mail.ru

**Цель исследования** — описать клинический случай интракраниальной аневризмальной костной кисты у пациентки 9 лет с периферическим парезом лицевого нерва слева.

**Материалы и методы.** У пациентки 9 лет с асимметрией лица и болевым синдромом по результатам магнитно-резонансной томографии головного мозга с контрастированием в области верхнего края верхушки пирамиды левой височной кости обнаружено неомогенное инкапсулированное образование с уровнем раздела сред в структуре, зонами повышенной интенсивности на T1- и T2-взвешенных изображениях, дополнительное интракраниальное образование в левой височной области. При мультиспиральной компьютерной томографии головного мозга обнаружено кистозно-солидное образование с четкими контурами, вызывающее деструкцию пирамиды левой височной кости. Образование распространялось в среднюю черепную ямку с компрессией базальных отделов левой височной доли. Поставлен диагноз: новообразование левой височной кости (возможно, первичная холестеатома) с деструкцией пирамиды и каменистой части височной кости и ската, с нагноением и образованием абсцесса левой височной доли. Парез лицевого нерва слева. Проведены костно-пластическая трепанация черепа в левой височной области, микрохирургическое удаление опухоли основания средней черепной ямки слева и пластика дефекта основания черепа абдоминальным жиром.

**Результаты.** Послеоперационный период протекал без осложнений. Пациентка жаловалась на умеренные головные боли в области оперативного доступа. Рана зажила первичным натяжением. Отмечена положительная динамика в неврологическом статусе в виде регресса пареза лицевого нерва слева. На основании данных гистологического и иммуногистохимического исследований диагностирована аневризмальная костная киста.

**Заключение.** Метод выбора при лечении аневризмальной костной кисты основания черепа — удаление единым блоком. При невозможности проведения радикальной операции используют радиотерапию и эмболизацию питающих кисту сосудов, однако убедительных исследований об их эффективности в таких случаях не опубликовано. Аневризмальная костная киста встречается нечасто, и отличить ее от хондробластомы, телеангиэктатической остеосаркомы и гигантоклеточной опухоли достаточно не просто, поэтому необходимо повышение уровня знаний о данной нозологии.

**Ключевые слова:** аневризмальная костная киста, основание черепа, височная кость, дифференциальная диагностика, лечение

**Для цитирования:** Аул Ш.А., Бобылев А.Г., Шогунбенков Т.М. и др. Аневризмальная костная киста: случай из практики. Нейрохирургия 2018;20(4):52–60.

DOI: 10.17650/1683-3295-2018-20-4-52-60

### Aneurysmal bone cyst: a case report

Sh.A. Aul<sup>1</sup>, A.G. Bobylev<sup>1</sup>, T.M. Shogunbenkov<sup>1</sup>, A.M. Gazeev<sup>1</sup>, E.A. Osipova<sup>1,2</sup>, A.V. Mol'kova<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>State Novosibirsk Regional Clinical Hospital; 130 Nemirovicha-Danchenko St., Novosibirsk 630087, Russia;

<sup>2</sup>Novosibirsk State Medical University, Ministry of Health of Russia; 52 Krasny Ave., Novosibirsk 630091, Russia

**The study objective** is to describe a clinical case of intracranial aneurysmal bone cyst in a 9-year-old patient with peripheral facial nerve paresis on the left.

**Materials and methods.** In a 9-year-old patient with facial asymmetry and pain syndrome on the results of magnetic resonance imaging of the brain with contrast in the upper edge of the left temporal bone pyramid revealed inhomogeneous encapsulated lesion with the level of media separation in the structure, high-intensity zones on T1- and T2-weighted images, additional intracranial lesion in the left temporal region. Multispiral computer tomography of the brain revealed a cystic-solid lesion with clear contours, causing destruction of the pyramid of the left temporal bone. Lesion spreads to the middle cranial fossa with compression of the basal parts of the left temporal lobe. The diagnosis was made: neoplasm of the left temporal bone (possibly primary cholesteatoma) with destruction of the pyramid and petrosal part of the temporal bone and clivus with suppuration and formation of abscess of the left temporal lobe. Left facial nerve paresis. Osteo-plastic

trepanation of the skull in the left temporal region, microsurgical removal of the tumor of the base of the middle cranial fossa on the left and plastic of the skull base defect with abdominal fat were performed.

**Results.** The postoperative period was uneventful. The patient complained of moderate headaches in the area of operative access. The wound healed by primary tension. Positive dynamics in neurological status in the form of regression of left facial nerve paresis was noted. Based on the data of morphological and immunohistochemical studies, an aneurysmal bone cyst was diagnosed.

**Conclusion.** The method of choice in the treatment of an aneurysmal bone cyst of the skull base is the en block removal. In case of impossibility of carrying out radical operation radiotherapy and embolization of the vessels feeding a cyst can be used, however convincing researches about their efficiency in such cases are not published. Aneurysmal bone cyst is uncommon, and to differentiate it from chondroblastoma, teleangiectatic osteosarcoma and giant cell tumors is rather difficult, therefore, it is necessary to increase the level of knowledge about this nosology.

**Key words:** aneurysmal bone cyst, skull base, temporal bone, differential diagnosis, treatment

**For citation:** Aul Sh.A., Bobylev A.G., Shogunbenkov T.M. et al. Aneurysmal bone cyst: a case report. *Neurokhirurgiya = Russian Journal of Neurosurgery* 2018;20(4):52–60.

## ВВЕДЕНИЕ

Аневризмальная костная киста (АКК) — это доброкачественное экспансивно растущее опухолеподобное поражение костей неясной этиологии, состоящее из многочисленных сосудистых пространств, заполненных кровью. АКК встречаются редко и составляют приблизительно 1–2 % всех опухолей костей [1]. От 3 до 6 % АКК локализируются в полости черепа [2].

Клинически данная патология проявляется чрезвычайно разнообразно: локальным отеком, гемифасциальным парезом или параличом, нарушением слуха, головной болью (и другими признаками повышенного внутричерепного давления), дисфагией, головокружением, шумом в ушах, парестезиями в области лица, диплопией, нарушениями зрения, проптозом глазного яблока, отореей, рецидивирующим бактериальным менингитом, впервые возникшим эпилептическим приступом, спонтанным внутричерепным кровоизлиянием, синдромом яремного отверстия [3–36].

Эта патология была впервые описана в 1942 г. Н.Л. Jaffe и L. Lichtenstein [37]. В англоязычной литературе описан 71 случай АКК [38], из них 43 случая — АКК височной кости, в том числе 15 с вовлечением каменистой части [39]. В российской периодике нам удалось обнаружить лишь 1 схожее клиническое наблюдение. Поиск проводился с использованием информационно-поисковых, библиотечных баз данных и репозиториях научной информации PubMed, Google Scholar, Scopus, Web of Science, eLIBRARY.ru, «Киберленинка» по ключевым словам «аневризмальные костные кисты», «аневризматические костные кисты», «АКК», «нейрохирургия», «онкология». Столь незначительное число зафиксированных наблюдений и отсутствие систематических обзоров увеличивает ценность каждого описанного случая и, соответственно, актуальность данной публикации.

## КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ

**Пациентка В.,** 9 лет, госпитализирована в августе 2017 г. с жалобами на асимметрию лица, боль в левой

височной области, в левом ухе. Из анамнеза известно, что асимметрия лица появилась в мае 2017 г. Пациентка была госпитализирована в неврологическое отделение с диагнозом: объемное образование средней черепной ямки слева, невринома коленчатого ганглия лицевого нерва слева. После лечения преднизолоном в дозе 60 мг в течение 5 дней с последующим снижением дозы на 10 мг каждые сутки выписана с положительной динамикой.

Через 2 мес при повторном обследовании отмечено усиление асимметрии лица, возвращение болевого синдрома. При магнитно-резонансной томографии (МРТ) головного мозга с контрастированием (31.07.2017) в области верхнего края вершины пирамиды левой височной кости обнаружено неомогенное инкапсулированное образование с уровнем раздела сред в структуре, зонами повышенной интенсивности на T1- и T2-взвешенных изображениях (ВИ); дополнительное интракраниальное образование в левой височной области (рис. 1).

При мультиспиральной компьютерной томографии (КТ) головного мозга (02.08.2017) обнаружено кистозно-солидное образование с четкими контурами, вызывающее деструкцию пирамиды левой височной кости. Образование распространялось в среднюю черепную ямку и сдавливало базальные отделы левой височной доли (рис. 2).

Неврологический статус при поступлении в нейрохирургическое отделение ГБУЗ НСО «Государственная Новосибирская областная клиническая больница»: пациентка в ясном сознании, контактна, адекватна. Зрачки средних размеров, асимметричны ( $D > S$ ), фотореакции сохранены. Глазные щели асимметричны ( $D < S$ ), движения глазных яблок сохранены в полном объеме. Нистагма нет. Асимметрия лица, признаки периферического пареза лицевого нерва слева V степени по шкале House–Brackmann (House–Brackmann Facial Nerve Grading Scale). Язык отклонен вправо. Бульбарных расстройств нет. Мышечная сила в конечностях достаточная. Сухожильные и периостальные рефлексы обычной живости, без убедительной разности сторон. Чувствительных расстройств нет. Координационные пробы выполняет. Менингеальных знаков нет. Функции тазовых органов не нарушены.



**Рис. 1.** Магнитно-резонансная томография головного мозга пациентки В. до операции, T2-режим, аксиальная проекция. В области верхнего края верхушки пирамиды височной кости слева имеется негетерогенное инкапсулированное образование с уровнями раздела сред размерами  $38 \times 31 \times 23$  мм. Образование расположено в медиобазальных отделах левой височной доли, деформирует ее

**Fig. 1.** Preoperative T2-weighted brain magnetic resonance imaging in patient B., axial projection, showing nonhomogeneous, encapsulated lesion ( $38 \times 31 \times 23$  mm) with fluid levels, located in the mediobasal portion of the left temporal lobe with brain tissue deformation



**Рис. 2.** Мультиспиральная компьютерная томография головного мозга пациентки В. в дооперационном периоде, аксиальная проекция. Кистозно-солидное образование пирамидки височной кости с распространением в среднюю черепную ямку и компрессией базальных отделов височной доли

**Fig. 2.** Preoperative brain multi-slice computed tomography in patient B., axial projection. Cystic-solid mass of the temporal bone pyramid extending to the middle cranial fossa with compression of the basal portion of the left temporal lobe

На консилиуме совместно с оториноларингологами был поставлен диагноз: новообразование левой височной кости (возможно, первичная холестеатома) с деструкцией пирамиды и каменистой части височной кости и ската, с нагноением и образованием абсцесса левой височной доли; парез лицевого нерва слева.

**Данные лабораторных анализов при поступлении.**

Клинический анализ крови: количество лейкоцитов —  $12,9 \times 10^9$ /л, эритроцитов —  $3,9 \times 10^{12}$ /л, уровень гемоглобина — 107 г/л, доля сегментоядерных нейтрофилов — 83,9 %, лимфоцитов — 10,2 %, моноцитов — 5,9 %. Общий анализ мочи: реакция кислая, удельный вес — 1012 г/л, содержание белка — 0,222 г/л, лейкоцитов — 3–4 в поле зрения, эритроцитов — 1–3.

Биохимический анализ крови без патологических отклонений.

Коагулограмма в пределах нормы.

Электрокардиограмма (05.08.2017): ритм синусовый, частота сердечных сокращений — 120 уд/мин, нормальное положение электрической оси сердца, синдром Вольфа–Паркинсона–Уайта.

**Операция.** С учетом предположительного наличия гнойного процесса в полости черепа в экстренном порядке провели костно-пластическую трепанацию черепа в левой височной области, микрохирургическое удаление опухоли основания средней черепной ямки слева и пластику дефекта основания черепа абдоминальным жиром (рис. 3). Вмешательство осуществляли под эндотрахеальным наркозом.

При ревизии в основании черепа обнаружили опухоль размерами  $5 \times 5 \times 4$  см, исходящую из основания средней черепной ямки (пирамиды височной кости, сфеноидальной кости), распространяющуюся до срединной линии и прорастающую в кавернозный синус. Образование имело плотную капсулу, при разрезе была отмечена повышенная кровоточивость из стромы опухоли. Строма опухоли была представлена макроскопически разнородными структурами — от фиброзной ткани до разнокалиберной сосудистой сети.

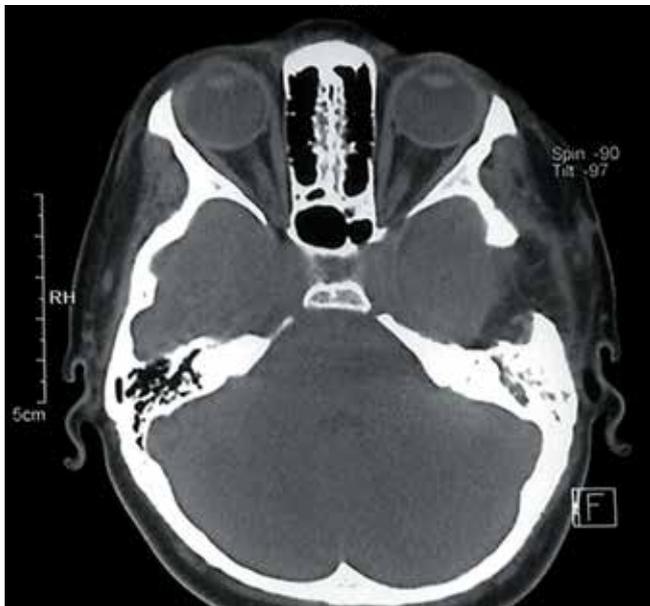
**Данные лабораторных анализов в послеоперационном периоде.**

Клинический анализ крови: количество лейкоцитов —  $5,2 \times 10^9$ /л, эритроцитов —  $4,2 \times 10^{12}$ /л, уровень гемоглобина — 114 г/л, доля сегментоядерных нейтрофилов — 50 %, лимфоцитов — 41 %, моноцитов — 6 %. Общий анализ мочи: реакция щелочная, удельный вес — 1010 г/л, содержание белка — 0,222 г/л, лейкоцитов — 1–2 в поле зрения, эритроцитов — 0.

Биохимический анализ крови: снижение уровня мочевины, креатинина, повышение уровня аланинаминотрансферазы и аспартатаминотрансферазы.

Коагулограмма в пределах нормы.

Послеоперационный период протекал гладко, без осложнений. Пациентка жаловалась на умеренные головные боли в области оперативного доступа. Рана зажила первичным натяжением. Отмечена положительная динамика неврологического статуса: выраженность



**Рис. 3.** Мультиспиральная компьютерная томография головного мозга пациентки В. в 1-е сутки после операции, аксиальная проекция. На месте удаленной опухоли визуализируется абдоминальный жир, использованный для пластики дефекта основания черепа

Fig. 3. Brain multi-slice computed tomography in patient B., 1<sup>st</sup> day after surgery, axial projection. At the site of removed tumor, abdominal fat used for the skull base reconstruction is visualized



**Рис. 4.** Мультиспиральная компьютерная томография головного мозга пациентки В. через 3 мес после операции, аксиальная проекция. В зоне дефекта средней черепной ямки жировая ткань. Положительная динамика в виде уменьшения компрессии височной доли левого полушария

Fig. 4. Brain multi-slice computed tomography in patient B., 3 months after surgery, axial projection. In the zone of the middle cranial fossa defect fatty tissue used for the reconstruction and decreased compression of the left temporal lobe can be visualized

пареза лицевого нерва слева уменьшилась до II степени по шкале House–Brackmann.

По результатам **гистологического исследования** (17.08.2017) верифицирована АКК: операционный материал представлен волокнистой фиброзной тканью, содержащей фибробласты, гистиоциты, очаговые скопления многоядерных гигантских клеток типа остеокластов с преимущественной локализацией вокруг сосудов. В части микропрепаратов фокусы костных балок с выраженными дистрофическими изменениями. В некоторых срезах выявлены нервные стволы и участок симпатического ганглия среди фиброзной ткани.

По результатам **иммуногистохимического исследования** (23.08.2017): внутренняя поверхность полости представлена волокнистой соединительной тканью, в которой содержится умеренное количество мономорфных веретенообразных клеток фибробластического и миофибриллярного типов. В фиброзной стенке выявляются гигантские многоядерные клетки типа остеокластов. Эндотелиальной выстилки внутренней поверхности кисты не определяется. В фиброзной ткани имеются скопления капилляров, поля кровоизлияний. Атипичных митозов не обнаружено.

Реакция на CD1a и S-100 отрицательная; экспрессия CD 68 выявлена на гигантских клетках, Ki-67 – на стромальных элементах.

На основании клинической картины, данных гистологического и иммуногистохимического исследований

сделано заключение, что патологический процесс соответствует АКК.

Через 3 месяца провели контрольную мультиспиральную КТ, по результатам которой роста образования не зарегистрировано (рис. 4). Пациентка не предъявляла жалоб. При осмотре отметили сохранение пареза лицевого нерва слева II степени по шкале House–Brackmann. Пациентка наблюдается у онколога и невролога.

## ОБСУЖДЕНИЕ

**Диагностика.** На МРТ-изображениях АКК визуализируется как неоднородное многокамерное образование с четким контуром, участками различной интенсивности сигнала и кольцевидными зонами пониженной интенсивности сигнала. Неоднородность сигнала обусловлена наличием продуктов распада крови на разных этапах [10]. В типичных случаях на T2-ВИ выявляются гиперинтенсивные кистозные полости, ограниченные гипоинтенсивным ободком. На T1-ВИ с внутривенным контрастированием гадолинием кистозные полости имеют гипоинтенсивный сигнал, внутренние перегородки – гиперинтенсивный [39].

Множественные уровни жидкости различной интенсивности – характерный, но неспецифический признак АКК, так как они могут встречаться при других патологиях, как доброкачественных, так и злокачественных, например при хондробластоме, телеангиэктатической остеосаркоме и гигантоклеточной

опухоли в сочетании с вторично развившейся АКК [40].

В случае сочетания гигантоклеточной опухоли и АКК на МРТ-снимках также будут присутствовать уровни жидкости с разной интенсивностью сигнала, зависящей от количества гемосидерина и наличия очагов фиброза внутри кист [41]. Но в отличие от первичной АКК при гигантоклеточной опухоли имеется солидный компонент с характерными гистологическими признаками, гипоинтенсивный в T1-режиме [42, 43]. При введении контраста интенсивность сигнала солидного компонента возрастает, что позволяет отличить гигантоклеточную опухоль от АКК [41].

При телеангиэктатической остеосаркоме, как и при гигантоклеточной опухоли, на МРТ-изображениях присутствует солидный компонент опухоли, что позволяет отличить ее от АКК. При телеангиэктатической остеосаркоме наблюдается деструкция кортикальных пластинок, в то время как при АКК происходит их истончение. Матрикс телеангиэктатической остеосаркомы обычно оссифицирован и имеет гипоинтенсивный сигнал в T1-режиме, а неминерализованные мягкотканые компоненты — гиперинтенсивный.

Хондробластома проявляется как образование с гипоинтенсивным сигналом на T1-ВИ и с гиперинтенсивным сигналом на T2-ВИ, что затрудняет дифференциальную диагностику хондробластомы и АКК при МРТ [44].

Когда врач сталкивается с подобной клинической картиной, как правило, он не включает АКК в список патологий для дифференциальной диагностики, поскольку она встречается крайне редко.

В ходе диагностического поиска мы рассматривали диагноз холестеатомы. Эта патология более распространена, чем АКК [45]. Кроме того, в литературе описаны случаи холестеатом с схожими клиническими проявлениями. Так, парез лицевого нерва — 2-й по частоте симптом после снижения слуха, который встречается, по данным разных авторов, в 20—64 % пораженных [46, 47].

Холестеатома представляет собой четко отграниченное опухолевидное образование, содержащее эпителиальные клетки и скопления различных веществ (в частности, кристаллов холестерина), окруженное капсулой. Она визуализируется как четко отграниченный очаг при КТ и МРТ, что также может наблюдаться и в случае АКК. В целом картина холестеатомы неспецифична. Как правило, она гипоинтенсивна на T1-ВИ и гиперинтенсивна на T2-ВИ в сравнении с мозговой тканью [48]. АКК представлены, как правило, только гипоинтенсивным компонентом. Впрочем, некоторые авторы описывают фокальные участки повышенного сигнала на T1- и T2-ВИ, предположительно представляющие собой кровь на разных этапах распада [48]. Также при инструментальных исследованиях могут быть обнаружены участки остеолита в случае АКК

и прогрессивные эрозии подлежащих костей в случае холестеатомы [1]. Важным различием будет наличие множественных уровней жидкости — признак, более характерный для АКК, хоть и не являющийся специфичным, так как может наблюдаться и при других опухолях, таких как телеангиэктатическая остеосаркома, возвратная фиброзная гистиоцитома [40]. Однако эти образования являются относительно редкими и, скорее всего, не будут учитываться при дифференциальной диагностике.

Для обеих патологий характерны разные медианы заболеваемости. Так, АКК распространена примерно одинаково среди мужчин и женщин и чаще встречается в первые 20 лет жизни [49]. Холестеатома же возникает чаще у мужчин старше 30 лет [46, 47].

Макроскопически холестеатома — это серовато-желтое инкапсулированное образование, напоминающее жемчуг [50]. При наличии грануляционной ткани может состоять из мягкой восковидной субстанции без интенсивной окраски. АКК — неоднородная структура бурого цвета, представленная фиброзной тканью и участками сосудистой сети. Патогномоничных признаков, выявляемых при МРТ и макроскопическом исследовании, она не имеет, поэтому главным методом диагностики считается гистологическое исследование биоптатов [31].

Инструментальные исследования, такие как КТ и МРТ, не обеспечивают достаточно точную диагностику АКК [40]. И все же их использование позволяет с определенной степенью уверенности дифференцировать другие редкие патологии. У нашей пациентки АКК не была диагностирована до операции ни по клиническим признакам, ни по данным инструментальных исследований. МРТ-картина позволяла заподозрить диагноз АКК, но редкость этой патологии помешала выдвинуть такое предположение.

Таким образом, дифференцируя эти редкие патологии, АКК можно заподозрить методом исключения. При отсутствии признаков, характерных для перечисленных выше образований, патологические изменения с большой степенью вероятности указывают на АКК, но для установления окончательного диагноза необходимо гистологическое исследование.

Гистологически АКК представляет собой ячейки разного размера, в большинстве случаев заполненные кровью, а на более поздних этапах — продуктами ее распада с переменным содержанием гемосидерина и формирующимися сгустками [51]. Тонкие перегородки, разделяющие ячейки, состоят из фиброзной ткани, из рыхлых или плотных коллагеновых волокон с включениями новообразованных костных балок или остеонной ткани [51], с большим количеством макрофагов, заполненных гемосидерином, в сочетании с веретенообразными клетками, остеобластами, очагами дегенеративного обызвествления [52]. По краям кистозных полостей и костных балок неравномерно

распределены очаги гигантских клеток типа остеокластов, что может напоминать строение стромы гигантоклеточной опухоли [53]. В стенках, представленных соединительной тканью, отсутствует мышечный слой и эндотелиальные клетки, за исключением случайно найденных небольших участков, выстланных сплюснутыми клетками, напоминающими эндотелий [24].

Важно дифференцировать АКК и телеангиэктатическую остеосаркому. На малом увеличении обнаруживается схожая микроскопическая картина, но при большом увеличении при телеангиэктатической ангиосаркоме можно выявить выраженную анаплазию клеток ввиду того, что она является новообразованием высокой степени злокачественности [54].

Микроскопически и гистологически заметно отличаются АКК и холестеатома. Гистологически холестеатома соответствует эпидермоидной кисте и состоит из десквамированного кератинизированного многослойного эпителия. Внутри полости могут обнаруживаться гигантоклеточные гранулемы, гемосидерин, воспалительная инфильтрация, оптические пустоты на месте растворившихся при обработке капель холестерина [55]. АКК гистологически соответствует кисте, разделенной соединительнотканнкими перегородками (с включениями остеоидной ткани) на отдельные ячейки, содержащие продукты распада крови на разных этапах [56].

Поскольку окончательный диагноз можно установить только по данным гистологического исследования, для определения тактики лечения в некоторых случаях рекомендуется проведение биопсии. Для диагностики АКК используют как открытую, так и пункционную биопсию. Тонкоигольная аспирационная биопсия – малоинвазивный и выгодный с экономической точки зрения метод [57], однако целесообразность его применения для диагностики АКК является спорной. По мнению некоторых авторов, этот метод не имеет диагностической ценности, так как в большинстве случаев удается получить аспират, содержащий только кровь или серозно-геморрагическую жидкость (в зависимости от стадии развития кисты) [58].

**Лечение.** Метод выбора при лечении АКК основания черепа – удаление единым блоком. Большинство авторов предпочитают радикальное хирургическое удаление, имеющее лучший исход. Частота рецидивов после него варьирует от 10 до 20 %. Так, J.W. Yu и соавт. проанализировали результаты 25 случаев лечения АКК орбиты. При тотальной резекции рецидивы наблюдались в 2 (10 %) из 20 случаев, при субтотальной резекции – во всех 5 случаях, т. е. в 100 % [5]. Некоторые исследователи попытались провести долгосрочное наблюдение. Например, в публикациях G.M. Lackmann и соавт. [19], С.М. Sayama и соавт. [31] не отмечено рецидива через 1 и 32 мес соответственно. Однако не существует убедительных стандартизированных иссле-

дований, в которых контролировалось бы состояние пациентов в течение долгого времени и регистрировалась бы частота рецидивов методами медицинской статистики. Риск рецидива выше у молодых пациентов, при большом размере очага, наличии митозов и неполном хирургическом удалении [59].

Хотя полное удаление очага предпочтительно, оно не всегда возможно. Частичная резекция сопряжена с высокой вероятностью рецидива (от 20 до 70 %, по данным разных авторов) [5]. В связи с этим ведутся разработки дополнительных методов лечения, которые могли бы снизить частоту рецидивов. К примеру, после частичного удаления АКК предлагается использовать криотерапию. Однако это ассоциировано с повышением частоты осложнений, таких как патологические переломы, повреждение нервных стволов, поэтому данный метод в нейрохирургии применяется весьма ограниченно. Относительно эффективно введение в полость кальцитонина в сочетании с субтотальной резекцией [60]. Радиотерапия используется, как правило, если другие способы лечения оказались неэффективными. Предложено также ее использование в случаях глубоко расположенных поражений основания черепа, поражений, вовлекающих твердую мозговую оболочку, в случаях, когда была выполнена субтотальная резекция, но ее эффект остался неясным [38]. Радиотерапия также сопряжена с высокой вероятностью рецидивирования (более 30 %), кроме того, существует риск таких серьезных осложнений, как развитие саркомы и других злокачественных новообразований. Все это значительно ограничивает возможность применения радиотерапии [56].

При поисках оптимального способа лечения предпринимались попытки заимствовать методы из ортопедической практики, такие как кюретаж. При этой процедуре АКК полностью выскабливается. Высокий риск рецидива (20–40 %) и агрессивность данной процедуры ограничивают применение данного метода для лечения АКК костей основания черепа [38].

Из-за сосудистой природы АКК существует риск развития кровотечения в ходе операции и, соответственно, массивной кровопотери. Для снижения риска интраоперационных осложнений предложено выполнять предоперационную эмболизацию питающего сосуда [6]. Это целесообразно, если АКК имеет обильное кровоснабжение [54]. Для эмболизации применяют поливиниловый спирт, 2N-бутилакрилат, его смесь с липидолом. Преимущество смеси 2N-бутилакрилата и липиодола состоит в рентгеноконтрастности и обеспечении перманентной окклюзии питающего сосуда, снижающей частоту реканализации [61]. Частота благоприятных исходов при использовании данной методики для лечения АКК, локализованных в костях скелета, составляет до 94 % [61–63], однако убедительных данных о самостоятельном ее применении для лечения АКК основания черепа не опубликовано.

## ВЫВОДЫ

Методом выбора при лечении АКК основания черепа считается удаление единым блоком. Если радикальная операция не может быть проведена, в качестве альтернативы рассматривают радиотерапию и эмболизацию питающих сосудов. Однако развернутых исследований о самостоятельном применении

данных методик для АКК основания черепа не проводилось.

Для повышения уровня знаний о данной нозологии необходимо длительное наблюдение за пациентами с АКК в послеоперационном периоде, постоянная и массовая публикация результатов научных исследований, анализ зарубежной литературы.

## ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- Bartels L.J. Facial nerve and medially invasive petrous bone cholesteatomas. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1991; 100(4 Pt 1): 308–16. DOI: 10.1177/000348949110000408. PMID: 2018289.
- Ameli N.O., Abbassioun K., Azod A., Saleh H. Aneurysmal bone cyst of the skull. *Can J Neurol Sci* 1984;11(4):466–71. PMID: 6518430.
- Aghaghazvini L., Sedighi N., Karami P., Yeganeh O. Skull base aneurysmal bone cyst presented with foramen jugular syndrome and multi-osseous involvement. *Iran J Radiol* 2012;9(3):157–60. DOI: 10.5812/iranjradiol.7952. PMID: 23329983.
- Ait Benali S., Ibahioin K., Zamiati S. et al. [Sphenotemporal aneurysmal bone cyst. A new case and review of the literature (In French)]. *Neurochirurgie* 2000;46(1):50–3. PMID: 10790645.
- Yu J.W., Kim K.U., Kim S.J., Choi S. Aneurysmal bone cyst of the orbit: a case report with literature review. *J Korean Neurosurg Soc* 2012;51(2):113–6. DOI: 10.3340/jkns.2012.51.2.113. PMID: 22500206.
- Blanchard M., Abergel A., Williams M.T., Ayache D. Aneurysmal bone cyst within fibrous dysplasia causing labyrinthine fistula. *Otol Neurotol* 2011;32(2):e11. DOI: 10.1097/MAO.0b013e3181dbb327. PMID: 20393375.
- Buxi T.B., Sud S., Vohra R. et al. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone. *Australas Radiol* 2004;48(2):251–5. DOI: 10.1111/j.1440-1673.2004.01282.x. PMID: 15230768.
- Cakirer S., Basak M., Celebi I. et al. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone. *Curr Probl Diagn Radiol* 2003;32(4):169–75. PMID: 12838262.
- Chalapati Rao K.V., Rao B.S., Reddy C.P. et al. Aneurysmal bone cyst of the skull. Case report. *J Neurosurg* 1977;47(4):633–6. DOI: 10.3171/jns.1977.47.4.0633. PMID: 903820.
- Chateil J.F., Dousset V., Meyer P. et al. Cranial aneurysmal bone cysts presenting with raised intracranial pressure: report of two cases. *Neuroradiology* 1997;39(7):490–4. PMID: 9258925.
- Chidambaram B., Santosh V., Balasubramaniam V. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone. *Childs Nerv Syst* 2001;17(7):411–4. PMID: 11465795.
- Gaillard J., Haguenaer J.P., Dumolard P. et al. [Temporo-mastoid aneurysmal bone cyst (In French)]. *Rev Otonéuroophthalmol* 1978;50(1):99–102. PMID: 635356.
- Haddad G.F., Hambali F., Mufarrij A. et al. Concomitant fibrous dysplasia and aneurysmal bone cyst of the skull base. Case report and review of the literature. *Pediatr Neurosurg* 1998;28(3):147–53. DOI: 10.1159/000028639. PMID: 9705593.
- Ito H., Kizu O., Yamada K., Nishimura T. Secondary aneurysmal bone cyst derived from a giant-cell tumour of the skull base. *Neuroradiology* 2003;45(9):616–7. DOI: 10.1007/s00234-003-0977-1. PMID: 12904925.
- Jeremiah B.S. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone. *J Int Coll Surg* 1965;43:179–83. PMID: 14226384.
- Keuskamp P.A., Horoupan D.S., Fein J.M. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone presenting as a spontaneous intracerebral hemorrhage: case report. *Neurosurgery* 1980;7(2):166–70. PMID: 6999376.
- Kumar P., Singh S., Phadke R.V. et al. Role of radiotherapy in a recurrent aneurysmal bone cyst of the temporal bone: case report. *Neurosurgery* 2006;58(3):E584. DOI: 10.1227/01.NEU.0000197487.95078.6F. PMID: 16528153.
- Kumar S., Retnam T.M., Krishnamoorthy T. et al. Intracranial aneurysmal bone cyst manifesting as a cerebellar mass. *Neurol India* 2003;51(1):121–3. PMID: 12865546.
- Lackmann G.M., Töllner U. Aneurysmal cyst of the petrosal bone. *Arch Dis Child* 1993;69(2):241–2. PMID: 8215531.
- Legent F., Lenne Y., Gayet M. et al. [Aneurysmal cyst of the petrous bone. Apropos of a case (In French)]. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac* 1988;105(8):591–6. PMID: 3248001.
- Mima S., Taguchi Y., Sekino H., Inomata I. [Case of aneurysmal bone cyst of the skull (In Japanese)]. *No Shinkei Geka*. 1984;12(7):825–31. PMID: 6483091.
- Muzumdar D.P., Goel A., Mistry R. et al. Postoperative cerebellar herniation in a large intrapetrous aneurysmal bone cyst. *J Clin Neurosci* 2004;11(5):534–7. DOI: 10.1016/j.jocn.2003.07.008. PMID: 15177404.
- Njock L.R., Cartry F., Faucon B. [Aneurysmal bone cyst of the temporal and zygomatic region (In French)]. *Rev Laryngol Otol Rhinol (Bord)* 2006;127(4):255–7. PMID: 17315792.
- Paige M.L., Chiu Y.T. Jr, Christ M. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone. *Neuroradiology* 1979;18(3):161–4. PMID: 492521.
- Pedrosa R., Tizziani M., Raimúndez R. [Aneurysmal bone cyst of the temporal bone in an 8. years old girl: case report (In Spanish)]. *Neurocirugia (Astur)* 2010;21(2):132–7. PMID: 20442976.
- Pellet W., Dufour H., Cannoni M. et al. [Aneurysmal temporal bone cyst. Apropos of 2 new cases (In French)]. *Neurochirurgie* 1991;37(3):160–72. PMID: 1881509.
- Purohit A., Chopra S., Sinha V.D., Dharker S.R. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone: a case report. *Neurol India* 2002;50(4):511–3. PMID: 12577110.
- Rustiadji, Chunadi E., Koosnadi S., Kozłowski K. Post-traumatic aneurysmal bone cyst of the temporal bone. *Radiol Med* 1989;78(4):386–7. PMID: 2595029.
- Sabatini P.R., Horenstein M.G., Oliveri C.V., Gacek R.R. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone associated with reversible hemifacial paralysis. *Am J Otolaryngol* 2005;26(4):261–4. PMID: 15991092.
- Sawin P.D., Muhonen M.G., Sato Y., Smith R.J. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone presenting as hearing loss in a child. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1995;33(3):275–84. PMID: 8557484.
- Sayama C.M., MacDonald J.D. Aneurysmal bone cyst of the petrous bone: case presentation and review of the literature. *Pediatr Neurosurg* 2010;46(4):308–12. DOI: 10.1159/000322016. PMID: 21196798.
- Shah G.V., Doctor M.R., Shah P.S. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone: MR findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 1995;16(4):763–6. PMID: 7611035.

33. Shimizu T., Ukai K., Hayashi T. et al. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone: magnetic resonance imaging as a valuable tool for preoperative diagnosis. *Am J Otolaryngol* 1998;19(6):379–82. PMID: 9839912.
34. Stapleton C.J., Walcott B.P., Linskey K.R. et al. Temporal bone chondroblastoma with secondary aneurysmal bone cyst presenting as an intracranial mass with clinical seizure activity. *J Clin Neurosci* 2011;18(6):857–60. DOI: 10.1016/j.jocn.2010.11.004. PMID: 21514167.
35. Tuna H., Karatas A., Yilmaz E.R. et al. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone: case report. *Surg Neurol* 2003;60(6):571–4. PMID: 14670683.
36. Tzifa K.T., Gan Y.C., Hockley A.D., Wilson P.S. Rapid enlargement of a bone cyst after biopsy. *J R Soc Med* 2002;95(7):360–1. PMID: 12091513.
37. Jaffe H.L., Lichtenstein L. Solitary unicameral bone cyst: with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance, and the pathogenesis. *Arch Surg* 1942;44(6):1004–25. DOI: 10.1001/archsurg.1942.01210240043003.
38. Tamimi A.F., Nimri C., Huseini M. et al. Aneurysmal bone cyst of the sphenoid bone as an intracranial and orbital space-occupying lesion. *Pediatr Neurosurg* 2005;41(5):280–2. DOI: 10.1159/000087490. PMID: 16195684.
39. Kletke S.N., Popovic S., Algird A. et al. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone presenting with headache and partial facial palsy. *J Neurol Surg Rep* 2015;76(1):e18–22. DOI: 10.1055/s-0034-1390020. PMID: 26251800.
40. Mankin H.J., Hornicek F.J., Ortiz-Cruz E. et al. Aneurysmal bone cyst: a review of 150 patients. *J Clin Oncol* 2005;23(27):6756–62. DOI: 10.1200/JCO.2005.15.255. PMID: 16170183.
41. Pereira H.M., Marchiori E., Severo A. Magnetic resonance imaging aspects of giant-cell tumours of bone. *J Med Imaging Radiat Oncol* 2014;58(6):674–8. DOI: 10.1111/1754-9485.12249. PMID: 25256094.
42. Meyers S.P. MRI of bone and soft tissue tumors and tumorlike lesions, differential diagnosis and atlas. Stuttgart: Thieme Medical Publishers, 2008. 814 p.
43. Stacy G.S., Peabody T.D., Dixon L.B. Mimics on radiography of giant cell tumor of bone. *AJR* *Am J Roentgenol* 2003;181(6):1583–9. DOI: 10.2214/ajr.181.6.1811583. PMID: 14627578.
44. Гаспарян Т.Г., Черкаев В.А., Бекашев А.Х. Опухоли основания черепа хондроидного ряда (обзор литературы). Опухоли головы и шеи 2012;(3):42–55. [Gasparyan T.G., Cherekaev V.A., Bekyashev A.K. Chondroid skull base tumors (a review of literature). *Opukholi golovy i shei = Head and Neck Tumors* 2012;(3):42–55. (In Russ.)]. DOI: 10.17650/2222-1468-2012-0-3-42-55.
45. Radhakrishnan R., Son H.J., Koch B.L. Petrous apex lesions in the pediatric population. *Pediatr Radiol* 2014;44(3):325–39. DOI: 10.1007/s00247-013-2836-5. PMID: 24584333.
46. Moffat D., Jones S., Smith W. Petrous temporal bone cholesteatoma: a new classification and long-term surgical outcomes. *Skull Base* 2008;18(2):107–15.
47. Sanna M., Pandya Y., Mancini F. et al. Petrous bone cholesteatoma: classification, management and review of the literature. *Audiol Neurootol* 2011;16(2):124–36. DOI: 10.1159/000315900. PMID: 20668373.
48. *Imaging in oncology*. Ed. by M.A. Blake, M.K. Kalra. Springer, 2008. 565 p.
49. Рогожин Д.В., Коновалов Д.М., Большаков Н.А. и др. Аневризальная костная киста у детей и подростков. Вопросы гематологии/онкологии и иммунопатологии в педиатрии 2017;(2):33–9. [Rogozhin D.V., Konovalov D.M., Bolshakov N.A. et al. Aneurysmal bone cyst in children and adolescents. *Voprosy gematologii/onkologii i immunopatologii v pediatrii = Hematology/Oncology and Immunopathology in Pediatrics* 2017;(2):33–9. (In Russ.)]. DOI: 10.24287/1726-1708-2017-16-2-33-39.
50. Yates P.D., Flood L.M., Banerjee A., Clifford K. CT scanning of middle ear cholesteatoma: what does the surgeon want to know? *Br J Radiol* 2002;75(898):847–52. DOI: 10.1259/bjr.75.898.750847. PMID: 12381695.
51. Черкаев В.А., Корниенко В.Н., Семенова Л.А. и др. Клиническое наблюдение аневризальной костной кисты основания черепа. Онкология. Журнал им. П.А. Герцена 2014;(4):64–70. [Cherekaev V.A., Kornienko V.N., Semenova L.A. et al. Aneurysmal bone cyst of the skull base: Clinical observation and literature review. *Onkologiya. Zhurnal im. P.A. Gerzena = P.A. Herzen Journal of Oncology* 2014;(4):64–70. (In Russ.)].
52. Слынько Е.И., Золотоверх А.М., Ермольева А.И. Хирургическое лечение аневризматической костной кисты верхнешейного отдела позвоночника. Украинский нейрохирургический журнал 2006;(1):104–10. [Slyn'ko E. I., Zolotoverkh A.M., Ermolyeva A.I. Aneurysmal bone cyst of upper cervical spine surgical treatment. *Ukrainsky neyrokhirurgichesky zhurnal = Ukrainian Neurosurgical Journal* 2006;(1):104–10. (In Russ.)].
53. Murphey M.D., Nomikos G.C., Flemming D.J. et al. From the archives of AFIP. Imaging of giant cell tumor and giant cell reparative granuloma of bone: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 2001;21(5):1283–309. DOI: 10.1148/radiographics.21.5.g01se251283. PMID: 11553835.
54. Hnenny L., Round N., Zherebitskiy V. et al. Giant aneurysmal bone cyst of the anterior cranial fossa and paranasal sinuses presenting in pregnancy: case report and literature review. *J Neurol Surg Rep* 2015;76(2):e216–21. DOI: 10.1055/s-0035-1555017. PMID: 26623230.
55. Maniu A., Harabagiu O., Perde Schreples M. et al. Molecular biology of cholesteatoma. *Rom J Morphol Embryol* 2014;55(1):7–13. PMID: 24715159.
56. Guida F., Rapanà A., Conti C. et al. Cranial aneurysmal bone cyst: a diagnostic problem. With a review of the literature. *Childs Nerv Syst* 2001;17(4–5):297–301. PMID: 11398954.
57. Creager A.J., Madden C.R., Bergman S., Geisinger R.K. Aneurysmal bone cyst. Fine-needle aspiration findings in 23 patients with clinical and radiologic correlation. *Am J Clin Pathol* 2007;128(5):740–5.
58. Layfield L.J. *Cytopathology of bone and soft tissue tumors*. Oxford University Press, 2002. 280 p.
59. Leithner A., Windhager R., Lang S. et al. Aneurysmal bone cyst. A population based epidemiologic study and literature review. *Clin Orthop Relat Res* 1999;(363):176–9. PMID: 10379320.
60. Khaldi M., Ben Hamouda K., Moussa M. et al. [Aneurysmal bone cyst of the cranial base treated by partial resection and calcitonin injection. A case report (In French)]. *Neurochirurgie* 2006;52(1):57–62. PMID: 16609661.
61. Mavrogenis A.F., Angelini A., Rossi G. et al. Successful NBCA embolization of a T2 aneurysmal bone cyst. *Acta Orthop Belg* 2014;80(1):126–31. PMID: 24873097.
62. Boriani S., De Iure F., Campanacci L. et al. Aneurysmal bone cyst of the mobile spine: report on 41 cases. *Spine (Phila Pa 1976)* 2001;26(1):27–35. PMID: 11148642.
63. Sheikh B.Y. Cranial aneurysmal bone cyst “with special emphasis on endovascular management”. *Acta Neurochir (Wien)* 1999;141(6):601–10. PMID: 10929725.

**Благодарность.** Коллектив авторов выражает благодарность главному врачу ГБУЗ НСО «Государственная Новосибирская областная клиническая больница» А.В. Юданову за административную поддержку, а также всем специалистам, которые принимали участие в техническом редактировании рукописи, в особенности А.В. Онищенко.

**Acknowledgment.** Authors express special thanks to A.V. Yudanov, the Head Physician of the State Novosibirsk Regional Clinical Hospital, for the administrative support and to all the specialists who took part in the technical editing of the manuscript, especially A.V. Onishchenko.

#### **Вклад авторов**

Ш.А. Аул: проведение операции, разработка дизайна исследования, получение данных для анализа, анализ полученных данных, обзор публикаций по теме статьи, редактирование текста;

А.Г. Бобылев: получение данных для анализа, анализ полученных данных;

Т.М. Шогунбеков: получение данных для анализа, обзор публикаций по теме статьи;

А.М. Газеев: получение данных для анализа, анализ полученных данных;

Е.А. Осипова: получение данных для анализа, анализ полученных данных, обзор публикаций по теме статьи, написание текста статьи и подготовка иллюстраций;

А.В. Молькова: получение данных для анализа, анализ полученных данных, обзор публикаций по теме статьи, написание текста статьи и подготовка иллюстраций.

#### **Authors' contributions**

Sh.A. Aul: surgical treatment, developing the research design, obtaining data for analysis, analysis of the obtained data, reviewing of publications of the article's theme, article editing;

A.G. Bobylev: obtaining data for analysis, analysis of the obtained data;

T.M. Shogunbenkov: obtaining data for analysis, reviewing of publications of the article's theme;

A.M. Gazeev: obtaining data for analysis, analysis of the obtained data;

E.A. Osipova: obtaining data for analysis, analysis of the obtained data; reviewing of publications of the article's theme, article writing, preparation of illustrations;

A.V. Mol'kova: obtaining data for analysis, analysis of the obtained data; reviewing of publications of the article's theme, article writing, preparation of illustrations.

#### **ORCID авторов / ORCID of authors**

Ш.А. Аул / Sh.A. Aul: <https://orcid.org/0000-0001-5574-7556>

А.Г. Бобылев / A.G. Bobylev: <https://orcid.org/0000-0003-0489-3945>

Т.М. Шогунбеков / T.M. Shogunbenkov: <https://orcid.org/0000-0002-0544-8811>

А.М. Газеев / A.M. Gazeev: <https://orcid.org/0000-0002-7055-4485>

Е.А. Осипова / E.A. Osipova: <https://orcid.org/0000-0002-6976-1057>

А.В. Молькова / A.V. Mol'kova: <https://orcid.org/0000-0002-0019-8016>

**Конфликт интересов.** Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

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

**Финансирование.** Исследование проведено без спонсорской поддержки.

**Financing.** The study was performed without external funding.

**Информированное согласие.** Родители пациента подписали информированное согласие на публикацию его данных.

**Informed consent.** There is given the parental informed consent to the publication of child's data.

**Статья поступила:** 11.03.2018. **Принята к публикации:** 04.10.2018.

**Article received:** 11.03.2018. **Accepted for publication:** 04.10.2018.