

В.Д. Володина¹, А.Н. Башков², С.В. Лищук², А.П. Дунаев³, Ж.В. Шейх⁴, М.В. Попов³

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ ХОНДРОМИКСОИДНОЙ ФИБРОМЫ ВИСОЧНОЙ КОСТИ, СИМУЛИРУЮЩЕЙ ХРОНИЧЕСКИЙ ВОСПАЛИТЕЛЬНЫЙ ПРОЦЕСС

¹Первый Московский государственный медицинский университет им. И.М. Сеченова Минздрава России, Москва

²Федеральный медицинский биофизический центр им. А.И. Бурназяна ФМБА России, Москва

³Московская городская клиническая онкологическая больница № 62, п. Истра, Московская обл.

⁴Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования, Москва

Контактное лицо: Виктория Дмитриевна Володина, e-mail: dr.volodinavd.rg@gmail.com

РЕФЕРАТ

Цель: Представить клинический случай доброкачественной опухоли костной ткани редкой локализации – хондромиксоидной фибромы височной кости, симулирующей хронический воспалительный процесс.

Материал и методы: Представлен клинический случай хондромиксоидной фибромы правой височной кости. На амбулаторном и стационарном этапах лечения проводилась рентгеновская компьютерная (КТ) и магнитно-резонансная томография (МРТ) височных костей.

Результаты: Пациент Т., 29 лет, на протяжении последних 10 лет испытывал дискомфорт, заложенность и шум в правом ухе без четких указаний на наличие в анамнезе острого отита. По результатам МРТ височных костей на амбулаторном этапе было выявлено объемное образование в правой височной кости. Была рекомендована госпитализация для уточнения диагноза и операционного лечения. В стационаре при КТ височных костей с внутривенным контрастированием в сосцевидном отростке правой височной кости определялось объемное образование с кольцевидным накоплением контрастного препарата, дифференциальный диагноз включал в себя опухоль и хронический абсцесс. По результатам морфологического исследования после проведенной радикальной операции на височной кости крайне редко возможно развитие хондромиксоидной фибромы.

Выводы: В височной кости крайне редко возможно развитие хондромиксоидной фибромы, которая при определенной лучевой семиотике может симулировать хронический воспалительный процесс. Отсутствие в анамнезе четкого указания на острый отит позволяет с большей вероятностью думать об опухолевом процессе.

Ключевые слова: хондромиксоидная фиброма, височная кость, хроническое воспаление, рентгеновская компьютерная томография, магнитно-резонансная томография

Для цитирования: Володина В.Д., Башков А.Н., Лищук С.В., Дунаев А.П., Шейх Ж.В., Попов М.В. Клинический случай хондромиксоидной фибромы височной кости, симулирующей хронический воспалительный процесс // Медицинская радиология и радиационная безопасность. 2022. Т. 67. № 5. С. 94–97. DOI:10.33266/1024-6177-2022-67-5-94-97

V.D. Volodina¹, A.N. Bashkov², S.V. Lishchuk², A.P. Dunaev³, Z.V. Sheykh³, M.V. Popov⁴

Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone Simulated Chronic Inflammation (Case Report)

¹First I.M. Sechenov Moscow State Medical University, Moscow, Russia

²A.I. Burnazyan Federal Medical Biophysical Center, Moscow, Russia

³Moscow City Clinical Hospital № 62, Istra, Moscow Region, Russia

⁴Russian Medical Academy of Continuing Professional Education, Moscow, Russia

Contact person: V.D. Volodina, e-mail: dr.volodinavd.rg@gmail.com

ABSTRACT

Purpose: To present a clinical case of a benign bone tumor of rare localization – chondromyxoid fibroma of the temporal bone, simulated chronic inflammation.

Material and methods: A clinical case of chondromyxoid fibroma of the right temporal bone is presented. X-ray computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) of the temporal bones were performed before and during hospitalization.

Results: Patient T., 29 years old, has been complaining about discomfort, congestion and noise in the right ear for the past 10 years without clear history of acute media otitis in anamnesis. According to the results of MRI of the temporal bones, a tumor of the right temporal bone was revealed. To clarify the diagnosis and for surgical treatment, the patient was referred to the clinic. During hospitalization CT of the temporal bones with contrast enhancement was performed and a tumor in the mastoid process of the right temporal bone with a ring-shaped accumulation of a contrast was determined, differential diagnosis included tumor and chronic abscess. According to the results of morphological examination after radical surgery of the temporal bone, chondromyxoid fibroma was diagnosed.

Conclusion: Localization of chondromyxoid fibroma in the temporal bone is extremely rare and having by chance some features can simulate chronic inflammatory process. The absence of a clear history of acute otitis allows more likely suggest the tumor.

Keywords: chondromyxoid fibroma, temporal bone, chronic inflammation, X-ray computed tomography (CT), magnetic resonance imaging (MRI)

For citation: Volodina VD, Bashkov AN, Lishchuk SV, Dunaev AP, Sheykh ZV, Popov MV. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone Simulated Chronic Inflammation (Case Report). Medical Radiology and Radiation Safety. 2022;67(5):94–97. (In Russian). DOI:10.33266/1024-6177-2022-67-5-94-97

Введение

Хондромиксоидная фиброма (ХМФ) – редкая опухоль костной ткани, впервые описанная Jaffe и Lichtenstein в 1948 г., на которую приходится 0,5 % от всех новообразований костной ткани [1]. Характерным для заболевания является поражение метафизов длинных трубчатых костей верхних и нижних конечностей, причем наиболее часто в области коленного сустава (до 40 % случаев) и стопы (до 8 % случаев) [2–4]. Локализация ХМФ в костях черепа встречается крайне редко и, как правило, ограничивается верхней и нижней челюстями [2, 5]. Поражение височной кости, которая по своему строению является плоской губчатой, встречается казуистически редко, описаны лишь единичные случаи [6–8]. В клинической картине ХМФ характерно длительное медленное прогрессирующее течение, которое может быть как бессимптомным, так и сопровождаться появлением таких жалоб, как головная боль, потеря слуха, лицевая боль, паралич лицевого нерва, оталгия, шум в ушах и диплопия из-за компрессии или вовлечения в патологический процесс нервных структуры [6]. При локализации опухоли в пирамиде височной кости очевиден деструктивный процесс, что в первую очередь позволяет думать о новообразовании. Однако при поражении предшествующих полостей, сформированных костными перегородками, например, ячеек сосцевидного отростка, и определенном паттерне накопления контрастного препарата в дифференциальном ряду следует также рассматривать воспалительный процесс.

Материал и методы

Пациент Т., 29 лет, поступил 08.02.2021 в клинику в отделение оториноларингологии для обследования и хирургического лечения с предварительным диагнозом объемного образования правой височной кости. Из анамнеза известно, что на протяжении последних 10 лет пациента беспокоили дискомфорт, заложенность, шум в правом ухе при раздражении громким звуком. По данным лабораторных исследований (биохимический анализ крови, коагулограмма, общие клинические анализы крови и мочи) изменений выявлено не было. На амбулаторном этапе по данным МРТ от 23.11.2020 определялись патологические изменения в сосцевидном отростке правой височной кости в виде гиперинтенсивного сигнала в последовательности T_2 в центре образования и гипоинтенсивного сигнала по периферии, без признаков рестрикции в последовательности DWI. Дифференциальный диагноз включал опухоль и воспалительный процесс, учитывая наличие жидкостного компонента в центре образования и солидной части по периферии в виде толстой капсулы (рис. 1).

В стационаре перед планируемым радикальным хирургическим лечением с целью уточнения структуры образования и распространенности деструктивных изменений выполнена КТ височных костей. Ниже представлен протокол исследования (рис. 2):

«В сосцевидном отростке правой височной кости определяется образование размерами $33 \times 18 \times 39$ мм. Его структура неоднородная. В центральном отделе плотность около 30 HU и не меняется после введения контрастного препарата. В тоже время прослеживается его кольцевидное накопление по периферии образования, напоминающее капсулу. Прилежащая кортикальная пластинка по внутренней поверхности сосцевидного от-

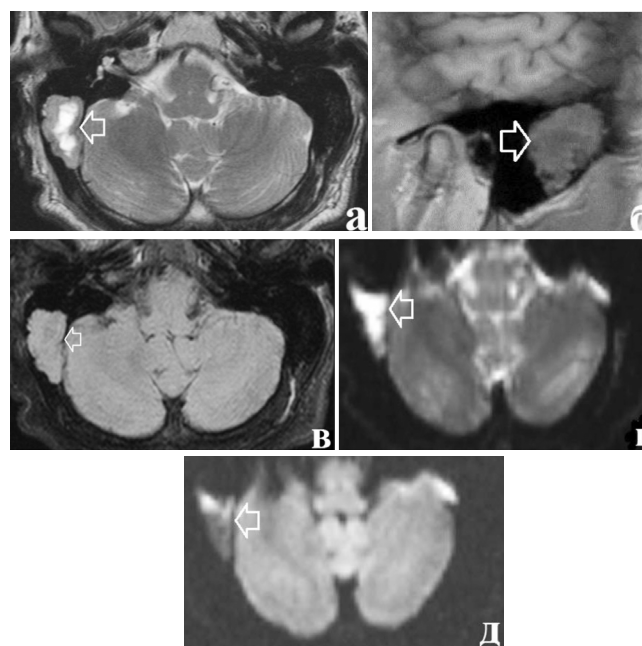


Рис. 1. Магнитно-резонансные томограммы височных костей. а – аксиальная проекция, T_2 , гиперинтенсивный сигнал в центре образования, гипоинтенсивный по периферии (стрелка); б – сагиттальная проекция, T_1 , однородный гипоинтенсивный сигнал (стрелка); в – аксиальная проекция, FLAIR, изоинтенсивный сигнал (стрелка); г – аксиальная проекция, DWI, $b=0$ с/мм², гиперинтенсивный сигнал (стрелка); д – аксиальная проекция, DWI, $b=800$ с/мм², гипоинтенсивный сигнал, отсутствие ограничения диффузии (стрелка)

Fig. 1. Magnetic resonance imaging of the temporal bones. a – axial view, T_2 , hyperintense signal in the mid of the tumor, hypointense on the periphery (arrow); б – sagittal view, T_1 , homogeneous hypointense signal (arrow); в – axial view, FLAIR, isointense signal (arrow); г – axial view, DWI, $b=0$ с/мм², hyperintense signal (arrow); д – axial view, DWI, $b=800$ с/мм², hypointense signal, no diffusion restriction (arrow)

ростка частично отсутствует, не прослеживается граница между образованием и сигмовидным синусом. Другие отделы правой височной кости, а также левая височная кость без патологических изменений.

Заключение. Образование сосцевидного отростка правой височной кости дифференцируется между опухолью и хроническим абсцессом, нельзя исключить вовлечение стенки сигмовидного синуса».

11.02.2020 под эндотрахеальным наркозом пациенту проведена операция: удаление новообразования сосцевидного отростка височной кости справа с применением микрохирургической техники. Для уточнения характера объемного образования и принятия решения об окончательном объеме оперативного вмешательства было выполнено срочное (интраоперационное) гистологическое исследование фрагментов патологической ткани. Ниже представлено микроскопическое описание материала:

«В срочно приготовленных криостатных срезах материал представлен тканью опухоли в виде полей крупных клеток с обильной зернистой цитоплазмой и небольшими угловатыми ядрами без видимых ядрышек и без митотической активности. Клеточная атипия отсутствует. Опухоль частично покрыта многослойным плоским эпителием, частично с изъязвленной поверхностью».

Во время операции была подтверждена спаянность опухоли со стенкой сигмовидного синуса. Постоперационный период протекал у пациента без осложнений.

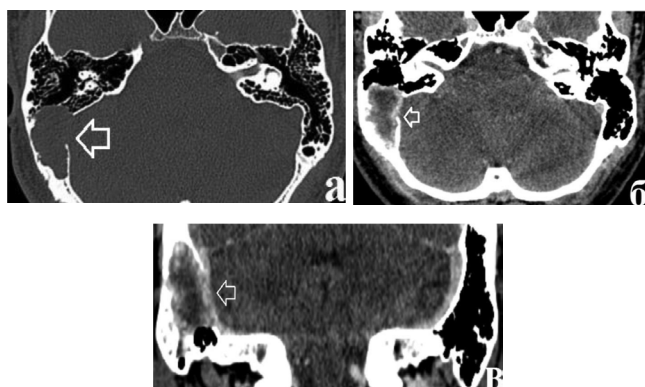


Рис. 2. Компьютерные томограммы. а – аксиальная проекция, определяется дефект медиальной стенки сосцевидного отростка (стрелка); б – аксиальная проекция, определяется накопление контрастного препарата по периферии образования (стрелка); в – фронтальная проекция, граница между образованием и сигмовидным синусом отсутствует (стрелка)

Fig. 2. Computed tomography. а – axial view, defect of the medial wall of the mastoid process (arrow); б – axial view, contrast accumulation on the periphery of the tumor (arrow); в – frontal view, the absence of border between the tumor and the sigmoid sinus (arrow)

Ниже представлен результат гисто морфологического исследования удаленного образования сосцевидного отростка правой височной кости (рис. 3):

«Материал представлен тканью опухоли в виде дольчатых структур из небольших звездчатых округлых и вытянутых клеток с округлыми угловатыми ядрами без видимых ядрышек, без митотической активности и клеточной атипии. Опухолевые клетки располагаются среди хондромиксоидного матрикса, прослеживается зональность в дольках по клеточности. Среди опухоли отмечается небольшое количество синусоидных сосудов. Имеются небольшие фрагменты прилежащей кости. Заключение: Изменения соответствуют хондромиксоидной фиброме».

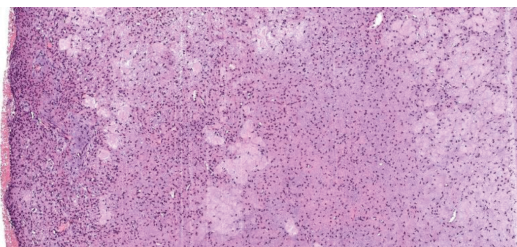


Рис. 3. Микроскопия удаленного материала, окраска гематоксилин-эозин, увеличение в 100 раз. Опухоль из клеток с хондронидной дифференцировкой с участками различной степени клеточности

Fig. 3. Microscopy of the removed material, hematoxylin-eosin staining, magnification 100 times. Tumor from cells with chondroid differentiation with areas of varying degrees of cellularity

Пациент выписан в удовлетворительном состоянии с рекомендацией дальнейшего динамического наблюдения.

Результаты и обсуждение

Представленный клинический случай интересен как с научной, так и практической точки зрения. С одной стороны, описана редчайшая локализация ХМФ в височной кости, что является примером возможности раз-

вития этой опухоли не только в трубчатых костях, но и плоских. Ying-Mei Zheng et al в 2018 г. опубликовали статью, в которой они доложили о собственном клиническом случае ХМФ в височной кости и представили обзор мировой литературы, который включал в себя всего 13 случаев аналогичной локализации этой опухоли [6]. Клиническое течение заболевания у больных имеет общие черты в виде медленного прогрессирующего нарастания головной боли, нарушении слуха, а также симптомов, связанных с поражением различных черепно-мозговых нервов (лицевая боль, паралич ветвей лицевого нерва, диплопия, шум в ушах и др.). Дифференциальный диагноз опухолевого процесса в височной кости включает в себя миксоидную хондросаркому, хордому, а также шванному лицевого нерва при поражении сосцевидного отростка.

Различные авторы отмечают частое наличие кальцинатов в структуре ХМФ (до 75 %), что отличает ее от шванномы [6, 9]. Хондросаркома и хордома, являясь злокачественными новообразованиями, имеют инфильтративный характер роста, что находит свое отражение при КТ и МРТ в виде нечетких контуров образования, отсутствии ограничивающего склеротического ободка, наличии экстраоссального компонента [10, 11]. В представленном случае дифференциальный диагноз помимо опухолевого процесса также включал в себя воспалительный, что было обусловлено неоднородной структурой образования с наличием жидкостного компонента в центре и солидного по периферии в виде накапливающего контрастный препарат ободка. Дефект кортикальной пластинки по медиальной поверхности сосцевидного отростка можно было объяснить механизмом атрофии от давления. Кроме того, отсутствовал экстраоссальный компонент образования, а также кальцинаты, которые могли бы указать на опухолевую природу и наличие хрящевого матрикса в структуре.

В целом, различные авторы отмечают неоднородный характер ХМФ при локализации в височной кости и в целом в плоских костях за счет сочетания хрящевого, миксоидного и фиброзного компонентов. При этом в КТ- и МРТ-семиотике преобладает солидный васкуляризованный компонент, что позволяет более убедительно думать об опухолевом процессе [10, 11].

В представленном случае отсутствие в клинической картине признаков воспалительного процесса, а также соответствующих данных анамнеза в виде указаний на перенесенный острый отит, позволяло в первую очередь расценивать образование в сосцевидном отростке как опухоль, но полностью исключить хронический абсцесс было затруднительно. Для принятия правильного решения об объеме операционного вмешательства интраоперационно было выполнено срочное гистологическое исследование, которое подтвердило опухолевую природу заболевания.

Заключение

Представлен клинический случай редкой доброкачественной опухоли атипичной локализации – хондромиксоидной фибромы сосцевидного отростка височной кости. Особенности лучевой семиотики были отсутствие характерной кальцинации, а также тип накопления контрастного препарата, имитирующий хронический абсцесс, что потребовало проведения срочного гистологического исследования во время операции.

СПИСОК ИСТОЧНИКОВ

- Jaffe H.L., Lichtenstein L. Chondromyxoid Fibroma of Bone. A Distinctive Benign Tumor Likely to Be Mistaken Especially for Chondrosarcoma // *Arch Pathol.* 1948. No. 45. P. 541–551.
- Lingen M.W., Solt D.B., Polverini P.J. Unusual Presentation of a Chondromyxoid Fibroma of the Mandible: Report of a Case and Review of the Literature // *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology.* 1993. V.75, No. 5. P. 615–21. DOI: 10.1016/0030-4220(93)90236-W.
- Гаспарян Т.Г., Черкаев В.А., Бекашев А.Х. Опухоли основания черепа хондронидного ряда (обзор литературы) // *Опухоли головы и шеи.* 2012. № 3. С. 42–56.
- Lang S. Adler C.P., Bone Diseases: Macroscopic, Histological and Radiological Diagnosis of Structural Changes in Skeleton, Springer-Verlag, 2000, pages 589, DM 269, ISBN 3-540-65061-X // *European Journal of Radiology.* 2001. V.37, No. 2. P. 139. DOI: 10.1016/S0720-048X(00)00246-1.
- Диаб Х.М., Дайхес Н.А., Карнеева О.А., Пашчинина О.А., Кондратчиков Д.С., Панина О.С. Удаление редкой хондромиксоидной фибромы инфралабиринтного пространства с использованием ретрофациального доступа // *Вестник оториноларингологии.* 2021. Т.86, № 4. С. 106–110. DOI: 10.17116/otorino20218604110.
- Zheng Y.M., Wang H.X., Dong C. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone: a Case Report and Review of the Literature // *World Journal of Clinical Cases.* 2018. V.6, No. 16. P. 1210–1216. DOI: 10.12998/wjcc.v6.i16.1210.
- Sharma M., Velho V., Binayake R., Tiwari C. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone: a Rare Entity // *Journal of Pediatric Neurosciences.* 2012. V.7, No. 3. P. 211–214. DOI: 10.4103/1817-1745.106483.
- Liu T., Yao J., Li X., Qi X., Zhao P., Tan Z., Wang J., Li Y. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone: A Rare Case Report // *Medicine.* 2020. V.99, No. 11. DOI: 10.1097/MD.00000000000019487.
- Thompson A.L., Bharatha A., Aviv R.I., Nedzelski J., Chen J., Bilbao J.M., Wong J., Saad R., Symons S.P. Chondromyxoid Fibroma of the Mastoid Facial Nerve Canal Mimicking a Facial Nerve Schwannoma // *The Laryngoscope.* 2009. V.119, No. 7. P. 1380–1383. DOI: 10.1002/lary.20486.
- Cappelle S., Pans S., Sciort R. Imaging Features of Chondromyxoid Fibroma: Report of 15 Cases and Literature Review // *The British Journal of Radiology.* 2016. V.89, No. 1064. P. 20160088. DOI: 10.1259/bjr.20160088.
- Otto B.A., Jacob A., Klein M.J., Welling D.B. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone: Case Report and Review of the Literature // *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.* 2007. No. 116. P. 922–927.

REFERENCES

- Jaffe H.L., Lichtenstein L. Chondromyxoid Fibroma of Bone. A Distinctive Benign Tumor Likely to Be Mistaken Especially for Chondrosarcoma. *Arch Pathol.* 1948;45:541-551.
- Lingen M.W., Solt D.B., Polverini P.J. Unusual Presentation of a Chondromyxoid Fibroma of the Mandible: Report of a Case and Review of the Literature. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology.* 1993;75;5:615-21. DOI: 10.1016/0030-4220(93)90236-W.
- Gasparyan T.G., Cherekaev V.A., Bekyashev A.Kh. Tumors of the Base of the Skull of the Chondroid Series (Literature Review). *Opukholi Golovy i Shei = Head and Neck Tumors (HNT).* 2012;3:42-56 (In Russ.).
- Lang S. Adler C.P., Bone Diseases: Macroscopic, Histological and Radiological Diagnosis of Structural Changes in Skeleton, Springer-Verlag, 2000, Pages 589, DM 269, ISBN 3-540-65061-X. *European Journal of Radiology.* 2001;37;2:139. DOI: 10.1016/S0720-048X(00)00246-1.
- Diab Kh.M., Daykhes N.A., Karneyeva O.A., Pashchinina O.A., Kondratchikov D.S., Panina O.S.. Removal of Rare Chondromyxoid Fibroma of Infralabyrinth Space Using Retrofacial Access. *Vestnik Otorinolaringologii.* 2021;86;4:106-110. (In Russ.). DOI: 10.17116/otorino20218604110.
- Zheng Y.M., Wang H.X., Dong C. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone: a Case Report and Review of the Literature. *World Journal of Clinical Cases.* 2018;6;16:1210-1216. DOI: 10.12998/wjcc.v6.i16.1210.
- Sharma M., Velho V., Binayake R., Tiwari C. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone: a Rare Entity. *Journal of Pediatric Neurosciences.* 2012;7;3:211–214. DOI: 10.4103/1817-1745.106483.
- Liu T., Yao J., Li X., Qi X., Zhao P., Tan Z., Wang J., Li Y. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone: A Rare Case Report. *Medicine.* 2020;99;11. DOI: 10.1097/MD.00000000000019487.
- Thompson A.L., Bharatha A., Aviv R.I., Nedzelski J., Chen J., Bilbao J.M., Wong J., Saad R., Symons S.P. Chondromyxoid Fibroma of the Mastoid Facial Nerve Canal Mimicking a Facial Nerve Schwannoma. *The Laryngoscope.* 2009;119;7:1380-1383. DOI: 10.1002/lary.20486.
- Cappelle S., Pans S., Sciort R. Imaging Features of Chondromyxoid Fibroma: Report of 15 Cases and Literature Review. *The British Journal of Radiology.* 2016;89;1064:20160088. DOI: 10.1259/bjr.20160088.
- Otto B.A., Jacob A., Klein M.J., Welling D.B. Chondromyxoid Fibroma of the Temporal Bone: Case Report and Review of the Literature. *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.* 2007;116:922-927.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Участие авторов. Статья подготовлена с равным участием авторов.

Поступила: 20.06.2022. **Принята к публикации:** 25.08.2022.

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

Financing. The study had no sponsorship.

Contribution. Article was prepared with equal participation of the authors.

Article received: 20.06.2022. **Accepted for publication:** 25.08.2022.