



СИНОНАЗАЛЬНАЯ ПАПИЛЛОМА ОНКОЦИТАРНОГО ТИПА СРЕДНЕГО УША
И ВЕРХНЕЧЕЛЮСТНОЙ ПАЗУХИ
(клинический случай)

Н.А. ДАЙХЕС, А.А. БАХТИН, В.В. ВИНОГРАДОВ, С.С. РЕШУЛЬСКИЙ,
О.А. САПЕГИНА, Е.Б. ФЕДОРОВА

ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр Оториноларингологии» ФМБА России,
Волоколамское шоссе, д. 30 кор. 2, г. Москва, 123180, Россия, e-mail: lor-pathology@yandex.ru

Аннотация. Синоназальные папилломы являются относительно редкими доброкачественными опухолями полости носа и околоносовых пазух, с частотой встречаемости 1-2 случая на 100 000 населения в год. Группа синоназальных папиллом включает в себя три подтипа: инвертированный, онкоцитарный и экзофитный. Типичной локализацией синоназальных папиллом является латеральная стенка носового хода в области средней раковины и этмоидального углубления. В настоящее время было описано лишь небольшое количество наблюдений в среднем ухе и сосцевидном отростке, глотке, носоглотке и слезном мешке. Синхронные синоназальные папилломы среднего уха и височной кости – крайне редкие опухоли, склонные к высокому риску рецидивирования и злокачественной трансформации. **Цель исследования** – повышение эффективности диагностики папиллярных образований среднего уха. **Материалы и методы исследования.** В статье приводится разбор клинико-морфологического случая мультифокальной ипсилатеральной синоназальной папилломы онкоцитарного типа верхнечелюстной пазухи и среднего уха у пациентки 86 лет. **Результаты и их обсуждение.** Редкость данной патологии вызывает сложности в дифференциальной диагностике папиллярных поражений среднего уха. В настоящее время был описан лишь 61 случай синоназальной папилломы среднего уха, из них 31 случай был представлен первичными опухолями, а 26 – вторичными с распространением из синоназального тракта; 4 случая без уточнения. **Заключение.** В описываемом нами клиническом случае опухоли обеих локализаций имеют идентичную морфологическую картину и иммуногистохимический профиль. Учитывая сложность хирургического доступа и высокий процент малигнизации для данной локализации пациентке рекомендовано динамическое наблюдение.

Ключевые слова: синоназальная папиллома, среднее ухо, малигнизация.

SINONASAL PAPILLOMA OF ONCOCYTIC TYPE IN MIDDLE EAR AND MAXILLARY SINUS
(clinical case)

N.A. DAYKHES, A.A. BAKHTIN, V.V. VINOGRADOV, S.S. RESHULSKIY,
O.A. SAPEGINA, E.B. FYODOROVA

National Medical Research Center of Otolaryngology, Federal Medical Biological Agency of Russia,
Volokolamskoye highway, 30, bld. 2, Moscow, 123180, Russia

Abstract. Sinonasal papillomas are defined as relatively rare benign tumors of nasal cavity and paranasal sinuses, with frequency of occurrence 2 per 100 000 population a year. Group of sinonasal papillomas includes 3 subtypes: inverted, oncocytic (cylindrical cells) and exophytic (squamous). Sinonasal papillomas are typically localized at the lateral wall of the nasal meatus in the middle concha and sphenoidal recess area. Currently, only a few observed cases in the middle ear, mastoid process, pharynx, nasopharynx and lacrimal sac have been described. Synchronous sinonasal papillomas in middle ear and temporal bone are extremely rare tumors prone to high risk of relapse and malignant transformation. **Purpose** was to increase the effectiveness of middle ear papillary formations diagnostics. **Materials and methods.** The article presents a clinical and morphological case analysis of multifocal ipsilateral sinonasal papilloma of oncocytic type in maxillary sinus and middle ear in a female patient aged 86. **Results and their discussion.** Differential diagnosis of middle ear papillary lesions is complicated due to the rareness of the pathology. Currently, only 61 cases of sinonasal papilloma in the middle ear have been described, 31 cases being primary tumors, 26 cases being secondary tumors spread from sinonasal tract and 4 cases being non-specified. **Conclusion.** In the described clinical case, tumors in both locations had identical morphological patterns and immunohistochemical profiles. Due to complicated surgical access and high malignancy rate in the given location, the patient is recommended a dynamic observation.

Key words: sinonasal papilloma, middle ear, malignancy.

Введение. Синоназальные папилломы являются относительно редкими доброкачественными опухолями полости носа и околоносовых пазух, с частотой встречаемости 1-2 случая на 100 000 населения в год [4]. Группа синоназальных папиллом включает в себя три подтипа: инвертированный, онкоцитарный и экзофитный [2]. Все эти три подтипа имеют свои морфологические особенности и характерную клиническую картину, так инвертированный и онкоцитарный подтипы характеризуются более агрессивным течением в виде частых рецидивов и деструктирующим характером роста. Кроме того синоназальные папилломы способны озлокачествляться, по литературным данным от 5% до 27% случаев [6].

Типичной локализацией синоназальных папиллом является латеральная стенка носового хода в области средней раковины и этмоидального углубления. Достаточно часто наблюдается сочетанное поражение полости носа и околоносовых пазух. Часто опухоли вторично распространяются в синусы, особенно верхнечелюстные и этмоидальные, в меньшей степени в сфеноидальный и фронтальный. Также были описаны изолированные поражения параназальных синусов без назального вовлечения, однако, такие клинические наблюдения встречаются редко. В редких случаях синоназальные папилломы могут возникать и в других местах. Были описаны случаи в среднем ухе и сосцевидном отростке, глотке, носоглотке и слезном мешке. Предположительно, это связано с эктопической миграцией Шнейдериановой мембраны во время эмбриогенеза, что могло бы объяснить эти нетипичные по локализации папилломы в смежных местах с синоназальным трактом.

Первичная синоназальная папиллома инвертированного типа среднего уха – исключительно редкая находка, представляющая сложную диагностическую проблему, поскольку симптоматика неспецифична и часто имитирует обычные клинические проявления, такие как средний серозный отит в виде шума в ушах, оталгии, отореи и потери слуха. Рентгенологические данные также не являются специфичными, в то время как высокая частота рецидивов и потенциальная злокачественная трансформация представляют собой в целом сложную хирургическую задачу, требующую агрессивного подхода [3].

На момент написания данной статьи, в мировой литературе был описан лишь 61 случай синоназальной папилломы инвертированного типа, локализующейся в среднем ухе. Из них 31 случай это первичные синоназальные папилломы инвертированного типа и 26 случаев вторичных опухолей. В четырех сообщениях о случаях не указывалось, является опухоль среднего уха первичной или вторичной. Причем частота злокачественной трансформации в данных случаях составила 34,4% с частотой рецидивов 53,6% [5]. Как видно из приведенных обзоров, уровень малигнизации был значительно выше в синоназальных папилломах инвертированного типа, располагающихся в среднем ухе, от общего числа случаев малигнизации с типичной локализацией синоназальной папилломы инвертированного типа в полости носа и околоносовых пазухах. Основываясь на предоставленном количестве описанных клинических случаев, наблюдается равномерное распределение по полу с широким возрастным диапазоном от 19 до 81 года, с возрастной медианой 56 лет [7].

Несмотря на небольшое количество клинических случаев описанных на сегодняшний день изолированной инвертированной папилломы среднего уха, можно сделать выводы о высокой частоте рецидивов и злокачественной трансформации данной группы опухолей в отличие от их типичного расположения в синоназальном тракте [1].

Стоит отметить что, на момент написания данной статьи в литературе отсутствовала информация о мультифокальной синоназальной папилломе онкоцитарного типа в верхнечелюстной пазухе и в среднем ухе.

Цель исследования – повышение эффективности диагностики папиллярных образований среднего уха.

Материалы и методы исследования. Приводим клиническое наблюдение пациентки с синоназальной папилломой онкоцитарного типа в среднем ухе и ипсилатеральной верхнечелюстной пазухе.

В ФГБУ НМИЦО ФМБА России поступила пациентка 86 лет с жалобами на дискомфорт в проекции правой верхнечелюстной пазухи, снижение слуха на правое ухо, выделения из правого уха. Данные жалобы проявляет на протяжении нескольких месяцев. При КТ околоносовых пазух – правая верхнечелюстная пазуха тотально выполнена содержимым с наличием гипervasкулярной опухоли, пролабирующей в средний носовой ход, размерами 28х30 мм. В остальных пазухах определяется содержимое и утолщение слизистой оболочки. На этом фоне, среднее ухо и наружной слуховой проход справа, тотально выполнены опухолью, активно накапливающей контрастный препарат, размеры мягкотканого компонента измерить затруднительно ввиду костных артефактов. Евстахиева труба и область носоглотки в процесс не вовлечены (рис.1). Госпитализирована в ФГБУ НМИЦО ФМБА России для верификации диагноза. Выполнена правосторонняя эндоскопическая гайморотомия и биопсия новообразования правого наружного слухового прохода с последующим гистологическим исследованием.

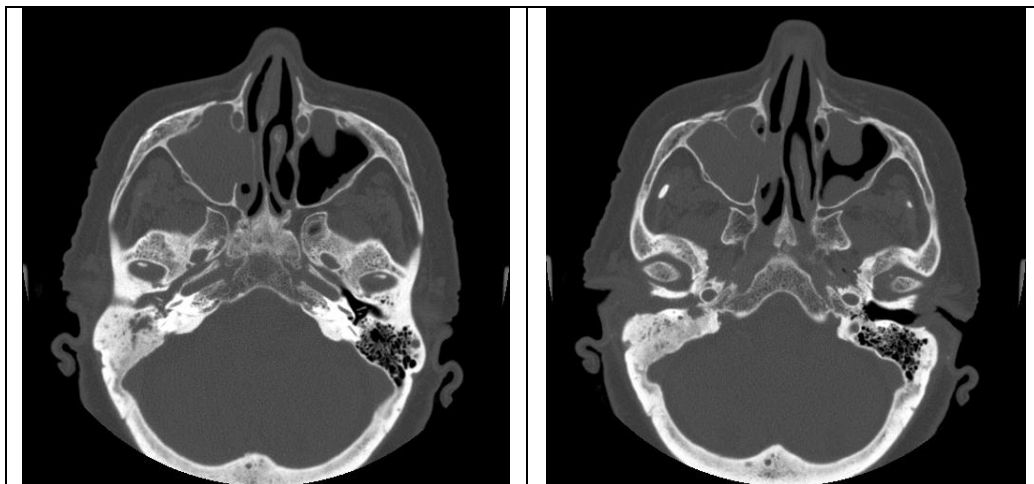


Рис. 1. КТ – околоносовых пазух и височной кости. Костные стенки пазух и слуховой трубы сохранены, отмечается отсутствие пневматизации правой верхнечелюстной пазухи, слуховой трубы и височной кости

При гистологическом исследовании операционного материала из правой верхнечелюстной пазухи отмечаются обширные поля некрозов с наличием небольших сохранных участков опухоли, местами папиллярного строения, местами солидного, представленные цилиндрическим реснитчатым эпителием с обильной ярко-эозинофильной цитоплазмой и выраженной базальноклеточной гиперплазией, а также наличием интраэпителиальной лейкоцитарной инфильтрации, формирующей интраэпителиальные микроабсцессы. Местами клетки опухоли проявляют плоскоклеточную дифференцировку с формированием межклеточных мостиков (рис. 2). В данных участках отмечается умеренный клеточный полиморфизм, при этом митозы единичные. Местами эпителиальные комплексы подозрительны на инвазивный рост «широким фронтом» в собственную пластинку, в отличие от участков погружного роста синоназальной папилломы окруженных базальной мембраной, однако, достоверно злокачественный рост не выявлен.

При гистологическом исследовании диагностической биопсии из наружного слухового прохода выявляются обширные поля некрозов с сохранными участками опухоли местами папиллярного строения, местами солидного, представленные цилиндрическим реснитчатым эпителием с обильной яркой эозинофильной цитоплазмой, выраженной базальноклеточной гиперплазией и наличием интраэпителиальной лейкоцитарной инфильтрации, формирующей интраэпителиальные микроабсцессы (рис 2).

Результаты и их обсуждение. Синоназальные папилломы – редкие опухоли синоназального тракта, имеющие склонность к рецидивированию, локально деструктивному росту и возможной малигнизации. Исключительная редкость развития данной патологии в ухе и отсутствие специфических клинических и рентгенологических симптомов создает трудности как для диагностики, так и для выбора оптимальной тактики лечения. Особую сложность эта опухоль вызывает в дифференциальной диагностике у врачей-патологоанатомов, так как в среднем ухе может возникать целый ряд опухолей папиллярного строения, как местной природы, так и метастатического происхождения. Среди метастатических опухолей среднего уха, имеющих папиллярное строение могут встречаться метастазы рака щитовидной железы, молочной железы, предстательной железы, рака почки. Но наибольшие трудности в рутинной практике могут возникнуть с такими первичными опухолями среднего уха, как агрессивная сосочковая опухоль и опухоль эндолимфатического мешочка.

Так, из 61 описанного клинического случая на сегодняшний день, на себя обращают внимание 2 из них, описанные как изолированное билатеральное поражение среднего уха опухолью папиллярного строения без первичной синоназальной папилломы полости носа или околоносовых пазух. Учитывая, что морфологическая картина синоназальной папилломы среднего уха и агрессивной сосочковой опухоли могут быть идентичны, прежде всего, следует исключить последнюю, как проявление синдрома фон Гиппель-Линдау. Учитывая тот факт, что билатеральное поражение даже типичной локализации (полость носа и околоносовые пазухи) для синоназальных папиллом – относительная редкость.

Особой диагностической проблемой, касающейся дифференциальной диагностики мультифокальных синоназальных папиллом среднего уха, является доказательство того, что поражение уха не является метастатическим на фоне малигнизации синоназальной папилломы полости носа или носовых пазух. Данная настороженность оправдана литературными данными, показывающими

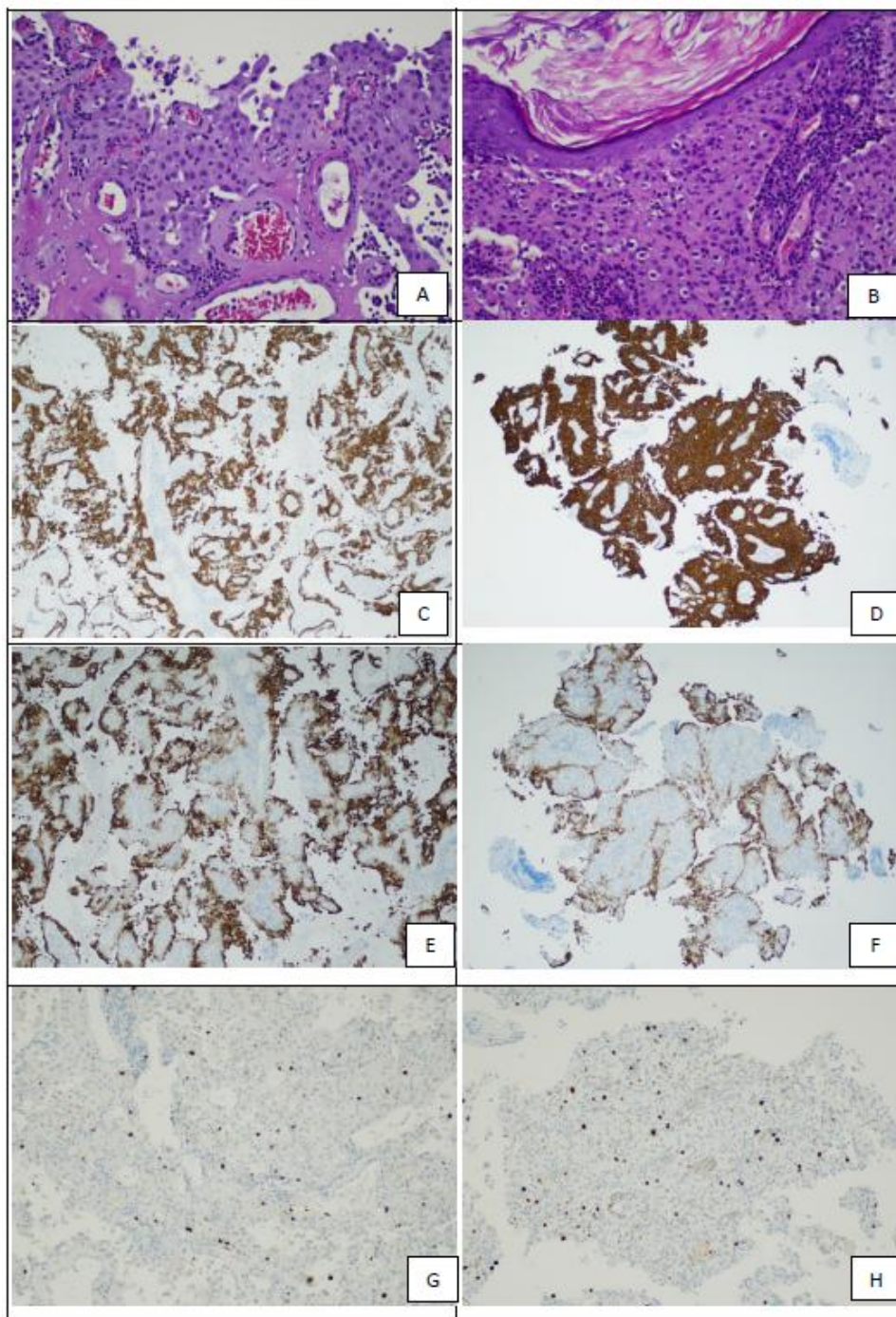


Рис. 2. А – Синоназальная папиллома, онкоцитарного типа в правой верхнечелюстной пазухе. Окраска гематокилином и эозином. Ув.: $\times 200$; В – Синоназальная папиллома, онкоцитарно типа в наружном слуховом проходе. Окраска гематоксилином и эозином. Ув.: $\times 200$; С – синоназальная папиллома, онкоцитарного типа в правой верхнечелюстной пазухе, иммуногистохимическая реакция с антителами к *Cytokeratin 5/6*, $\times 50$; D- синоназальная папиллома, онкоцитарно типа в наружном слуховом проходе, иммуногистохимическая реакция с антителами к *Cytokeratin 5/6*, $\times 50$; E – синоназальная папиллома, онкоцитарного типа в правой верхнечелюстной пазухе, иммуногистохимическая реакция с антителами к *Cytokeratin 7*, $\times 50$; F – синоназальная папиллома, онкоцитарно типа в наружном слуховом проходе, иммуногистохимическая реакция с антителами к *Cytokeratin 5/6*, $\times 50$; G – синоназальная папиллома, онкоцитарного типа в правой верхнечелюстной пазухе, иммуногистохимическая реакция с антителами к *Ki-67*, $\times 100$; H – синоназальная папиллома, онкоцитарно типа в наружном слуховом проходе, иммуногистохимическая реакция с антителами к *Ki-67*, $\times 100$ обнаружение злокачественного компонента в опухоли 34,4% описанных случаев, что значительно выше процента малигнизации при типичном для синоназальных папиллом расположении

Заключение. В описываемом нами клиническом случае опухоли обеих локализаций имеют идентичную морфологическую картину и иммуногистохимический профиль. Несмотря на ипсилатеральное расположение опухолей, по данным рентгенологического исследования, в нашем наблюдении было показано отсутствие связи этих двух процессов посредством Евстахиевой трубы и носоглотки, что доказывает мультифокальный характер поражения. Учитывая сложность хирургического доступа, редкую частоту встречаемости данной опухоли в барабанной полости и высокий процент малигнизации для данной локализации, пациентке рекомендовано динамическое наблюдение.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов

Литература

1. Adams M., Smith C., Hampton S. Isolated Schneiderian papilloma of the middle ear cleft // *BMJ Case Rep.* 2019. Vol. 3. №12 P. e228130. DOI: 10.1136/bcr-2018-228130.
2. Bishop J.A., OSPs and ESPs and ISPs, Oh my! An update on sinonasal (Schneiderian) papillomas // *Head Neck Pathol.* 2017. Vol. 11 № 3. P. 269–277. DOI: 10.1007/s12105-017-0799-9.
3. Blioskas S., Konstantinidis I., Antoniadis I., Kypriotou A., Hytioglou P., Markou K. Primary Inverted Papilloma of the Middle Ear // *Ear Nose Throat J.* 2021. Vol. 9 P. 1455613211053395. DOI: 10.1177/01455613211053395.
4. Gnepp R.D., Bishop A.J. Gnepps diagnostic surgical pathology of the Head and Neck, third edition, // Elsevier, 2021. №1. P. 140–143
5. Miller P.L., Walsh E., Cho D.Y., Woodworth B.A., Grayson J.W. Inverted Papilloma of the Middle Ear: Two New Cases and Systematic Review // *Allergy Rhinol (Providence).* 2022. Vol. 26, P. 13:21526575221130711. DOI: 10.1177/21526575221130711
6. Re M., Gioacchini F.M., Bajraktari A., Tomasetti M., Kaleci S., Rubini C., Bertini A., Magliulo G., Pasquini E. Malignant transformation of sinonasal inverted papilloma and related genetic alterations: a systematic review // *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2017. Vol. 274. № 8 P. 2991–3000. DOI: 10.1007/s00405-017-4571-2
7. Thompson L.D.R. Middle Ear and Temporal Bone Papilloma: A Clinicopathologic Study and Comprehensive Literature Review of 57 Cases // *Head Neck Pathol.* 2021 Vol. 15. № 4. P.1212–1220. DOI: 10.1007/s12105-021-01334-4.

References

1. Adams M, Smith C, Hampton S. Isolated Schneiderian papilloma of the middle ear cleft. *BMJ Case Rep.* 2019;3(12):e228130. DOI: 10.1136/bcr-2018-228130.
2. Bishop JA, OSPs and ESPs and ISPs, Oh my! An update on sinonasal (Schneiderian) papillomas. *Head Neck Pathol.* 2017;11(3):269-77. DOI: 10.1007/s12105-017-0799-9.
3. Blioskas S, Konstantinidis I, Antoniadis I, Kypriotou A, Hytioglou P, Markou K. Primary Inverted Papilloma of the Middle Ear. *Ear Nose Throat J.* 2021;9:1455613211053395. DOI: 10.1177/01455613211053395.
4. Gnepp RD, Bishop AJ. Gnepps diagnostic surgical pathology of the Head and Neck, third edition, Elsevier, 2021;1:140-3
5. Miller PL, Walsh E, Cho DY, Woodworth BA, Grayson JW. Inverted Papilloma of the Middle Ear: Two New Cases and Systematic Review. *Allergy Rhinol (Providence).* 2022;26:13:21526575221130711. DOI: 10.1177/21526575221130711
6. Re M, Gioacchini FM, Bajraktari A, Tomasetti M, Kaleci S, Rubini C, Bertini A, Magliulo G, Pasquini E. Malignant transformation of sinonasal inverted papilloma and related genetic alterations: a systematic review. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2017;274(8):2991-3000. DOI: 10.1007/s00405-017-4571-2
7. Thompson LDR. Middle Ear and Temporal Bone Papilloma: A Clinicopathologic Study and Comprehensive Literature Review of 57 Cases. *Head Neck Pathol.* 2021;15(4):1212-20. DOI: 10.1007/s12105-021-01334-4.

Библиографическая ссылка:

Дайхес Н.А., Бахтин А.А., Виноградов В.В., Решульский С.С., Сапегина О.А., Федорова Е.Б. Синоназальная папиллома онкоцитарного типа среднего уха и верхнечелюстной пазухи (клинический случай) // Вестник новых медицинских технологий. Электронное издание. 2023. №5. Публикация 1-6. URL: <http://www.medtsu.tula.ru/VNMT/Bulletin/E2023-5/1-6.pdf> (дата обращения: 03.10.2023). DOI: 10.24412/2075-4094-2023-5-1-6. EDN HGQHTZ*

Bibliographic reference:

Daykhes NA, Bakhtin AA, Vinogradov VV, Reshulskiy SS, Sapagina OA, Fyodorova EB. Sinonazal'naja papilloma onkocitarnogo tipa srednego uha i verhnicheljustnoj pazuhi (klinicheskij sluchaj) [Sinonasal papilloma of oncocytic type in middle ear and maxillary sinus (clinical case)]. *Journal of New Medical Technologies, e-edition.* 2023 [cited 2023 Oct 03];5 [about 5 p.]. Russian. Available from: <http://www.medtsu.tula.ru/VNMT/Bulletin/E2023-5/1-6.pdf>. DOI: 10.24412/2075-4094-2023-5-1-6. EDN HGQHTZ

* номера страниц смотреть после выхода полной версии журнала: URL: <http://medtsu.tula.ru/VNMT/Bulletin/E2023-5/e2023-5.pdf>

**идентификатор для научных публикаций EDN (eLIBRARY Document Number) будет активен после выгрузки полной версии журнала в eLIBRARY