

Внутриутробное лечение неиммунной водянки плода при кистозно-аденоматозном пороке развития легкого I типа

Н.В. Косовцова ✉, М.В. Павличенко, Я.Ю. Поспелова, Н.А. Фёдорова

ФГБУ «Уральский научно-исследовательский институт охраны материнства и младенчества» Министерства здравоохранения Российской Федерации; Россия, г. Екатеринбург

РЕЗЮМЕ

Цель статьи. Представить опыт использования торако-амниотического шунта для лечения плода с диагнозом «неиммунная водянка плода» на фоне кистозно-аденоматозного порока развития легких I типа.

Основные положения. Врожденный кистозно-аденоматозный порок развития легких (КАПРЛ) представляет собой доброкачественное поражение легких, которое проявляется до рождения в виде кисты или образования в грудной клетке. Макрокистозная форма данного порока сопряжена со значительным риском гипоплазии легких, плеврального выпота, неиммунной водянки плода. Представлено собственное наблюдение пациентки с КАПРЛ I типа у плода и признаками неиммунной водянки.

Заключение. Применение внутриутробного торако-амниотического шунтирования может купировать проявления водянки при КАПРЛ I типа у плода.

Ключевые слова: кистозно-аденоматозный порок развития легких у плода, неиммунная водянка, торако-амниотическое шунтирование.

Для цитирования: Косовцова Н.В., Павличенко М.В., Поспелова Я.Ю., Фёдорова Н.А. Внутриутробное лечение неиммунной водянки плода при кистозно-аденоматозном пороке развития легкого I типа. Доктор.Ру. 2024;23(2):60–64. DOI: 10.31550/1727-2378-2024-23-2-60-64

Intrauterine Treatment of Nonimmune Fetal Dropsy with Type I Cystic Adenomatous Lung Malformation

N.V. Kosovtsova ✉, M.V. Pavlichenko, Ya.Yu. Pospelova, N.A. Fedorova

Ural Research Institute of Maternal and Infant Care; 1 Repin Str., Yekaterinburg, Russian Federation 620028

ABSTRACT

Aim. To present the experience of using a thoracoamniotic bypass for the treatment of a fetus diagnosed with nonimmune fetal dropsy, against the background of cystic adenomatous lung malformation type I.

Key points. Congenital cystic adenomatous pulmonary malformation (CAPRL) is a benign lung lesion that appears before birth as a cyst or mass in the chest. The macrocystic form of this defect is associated with a significant risk of pulmonary hypoplasia, pleural effusion, and non-immune fetal hydrops. We present our own observation of a patient with type 1 CAPRL in the fetus and signs of non-immune hydrops.

Conclusion. The use of intrauterine thoraco-amniotic shunting can stop the manifestations of hydrops in type I CAPRL in the fetus.

Keywords: cystic adenomatous malformation of the lungs in the fetus, non-immune hydrops, thoraco-amniotic shunt.

For citation: Kosovtsova N.V., Pavlichenko M.V., Pospelova Ya.Yu., Fedorova N.A. Intrauterine treatment of nonimmune fetal dropsy with type I cystic adenomatous lung malformation. Doctor.Ru. 2024;23(2):60–64. (in Russian). DOI: 10.31550/1727-2378-2024-23-2-60-64

ВВЕДЕНИЕ

Врожденный кистозно-аденоматозный порок развития легких (КАПРЛ) представляет собой доброкачественное поражение легких, которое проявляется до рождения в виде кисты или образования в грудной клетке. Состоит из аномальной легочной ткани, которая не функционирует должным образом, но продолжает расти. Гистологически представляется аномальной пролиферацией концевых респираторных бронхиол [1]. КАПРЛ также часто называют врожденной мальформацией легочных дыхательных путей. Данный порок развития встречается с частотой 1 : 25 000–1 : 35 000 [2]. Патологический процесс обычно затрагивает только одну долю легкого, а кистозные структуры возникают в результате чрезмерного разрастания терминальных бронхиол, с уменьшением количества альвеол [3].

КАПРЛ пренатально классифицируется на макрокистозный и микрокистозный в зависимости от его появления при пренатальном ультразвуковом исследовании (УЗИ) [4];

- тип I (макрокистозный) — 50–70% случаев, характеризуется множественными крупными кистами (до 10 см) или одиночной доминантной, часто многокамерной кистой, с псевдомногослойным, реснитчатым, цилиндрическим эпителием, напоминающим дистальное бронхиальное дерево, с нормальными альвеолами между кистами. При визуализации одной кисты дифференциальный диагноз может проводиться с врожденной паренхиматозной кистой и бронхогенной кистой [5];
- тип II (микрокистозный тип) — 20–40% случаев, обычно представляется множественными крошечными кистозными структурами диаметром меньше 2 см;

✉ Косовцова Наталья Владимировна / Kosovtsova, N.V. — E-mail: kosovcovan@mail.ru

- тип III (солидный тип) — более 10% случаев, выглядит как объемная солидная масса с кистами менее 0,5 см в диаметре, имитируя терминальные бронхиолы и альвеолярные протоки — считается формой легочной гиперплазии.

Микрокистозная мальформация, которая проявляется как сплошная экзогенная масса, имеет тенденцию к спонтанной регрессии примерно через 26–28 нед беременности [6,7]. С другой стороны, макрокистозные поражения, которые содержат одиночные или множественные кисты диаметром 5 мм и более, обычно не регрессируют, поскольку жидкость накапливается внутри кист [8]. Макрокистозная форма КАПРЛ сопряжена со значительным риском гипоплазии легких, плеврального выпота, отека плода и последующей гибели [4].

КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ

В Уральском научно-исследовательском институте охраны материнства и младенчества (НИИ ОММ) в 2010–2021 гг. проведено ретроспективное исследование 26 плодов с подтвержденным постнатально КАПРЛ. Все пациентки (n = 26) были старше 20 лет (средний возраст 25 лет), повторнородящие, повторнородящие. У 100% пациенток диагноз КАПРЛ был установлен внутриутробно на втором скрининговом ультразвуковом исследовании. Во всех случаях процесс был односторонним. В 25 случаях был зарегистрирован солидный тип КАПРЛ (тип III). В 4 случаях произошла спонтанная регрессия порока. Только в 1 случае нами был зафиксирован тип I порока с развитием неиммунной водянки плода. Данной пациентке проведены кордоцентез и одностороннее плевроамниальное шунтирование для опорожнения крупной кисты. Установлен отечественный плевроамниальный шунт 3Fr, 49 мм, разработанный в НИИ ОММ и изготовленный из силиконовой трубки наружным диаметром $1,05 \pm 0,03$ мм и внутренним диаметром $0,55 \pm 0,03$ мм (патент № 2728944 от 03.08.2020). Исследования плода проводились на ультразвуковом аппарате Voluson E8 и магнитно-резонансном томографе GE Signa HDxt 1.5 T.

Пациентка К., 30 лет, жительница Свердловской области, 2-я беременность, 2-е роды. Соматический и акушерско-гинекологический анамнез не отягощены.

В 20 нед проведен второй УЗИ-скрининг: в нижней и средней части правого легкого плода обнаружено многокамерное, анэхогенное образование с перегородками. Выставлен диагноз: КАПРЛ типа I.

В 23–24 нед, по данным УЗИ, в области правого легкого плода обнаружены множественные кистозные включения от 10 до 30 мм. Сердце смещено в левую половину грудной полости, наблюдается асцит у плода. Рекомендована консультация в НИИ ОММ, от которой пациентка отказалась.

В сроке 28 нед беременности в структуре легких плода выявлены множественные кистозные включения до 43 мм в диаметре. Выраженный асцит у плода. Диагноз КАПРЛ типа I подтвержден.

В 28–29 нед беременности пациентка госпитализирована в НИИ ОММ. Проведено УЗИ: предполагаемая масса плода 2510 г. Индекс амниотической жидкости = 23 см — многоводие. У плода визуализирован асцит до 40 мм, сердце смещено влево, левое легкое гипоплазировано, в правом легком визуализируются кистозные включения в диаметре 43 и 21 мм, кисты заполняют весь объем легкого. Неиммунная водянка плода на фоне КАПРЛ типа I, смещение средостения. Соотношение объема мальформации (см^3) к окружности головки плода (см) = 1,9. Плацента по передней стенке, тол-

щиной 67 мм — отек плаценты. Кровотоки у плода в пределах нормы (рис. 1, 2).

Проведено полное клинико-лабораторное обследование и МРТ: правое легкое плода представлено кистозно-аденоматозной перестройкой: конгломерат разнокалиберных тонкостенных кист (киста максимального размера до 50 мм, дополнительно — крупные кисты около 30 и 40 мм, множественные мелкие кисты, по суммарному объему не уступающие сумме крупных). Правое легкое увеличено, типичной легочной ткани не содержит. Средостение резко сдвинуто влево. Левое легкое значительно уменьшено (объем типичной легочной ткани не более 8 мм). В брюшной полости определяется выпот (до 34 мм). Живот увеличен. Заключение — врожденный порок развития плода: КАПРЛ, смещение средостения влево, гипоплазия левого легкого, компрессия левого легкого. Выраженный асцит у плода. Плацента расположена по передней стенке, толщиной 69 мм — отек плаценты (рис. 3).

По решению консилиума, учитывая возможную внутриутробную хирургическую коррекцию сформировавшегося порока развития у плода, срок беременности, настрой пациентки на дальнейшее вынашивание и пролонгирование беременности, рекомендовано оперативное фетальное вмешательство в объеме плевроамниального шунтирования, а также пункции брюшной полости плода с эвакуацией трансудата.

Рис. 1. Неиммунная водянка плода при кистозно-аденоматозном пороке развития легких типа I.

Здесь и далее в статье иллюстрации авторов

Fig. 1. Nonimmune fetal dropsy with type I cystic adenomatous defect. *All photos in the paper courtesy of the authors*

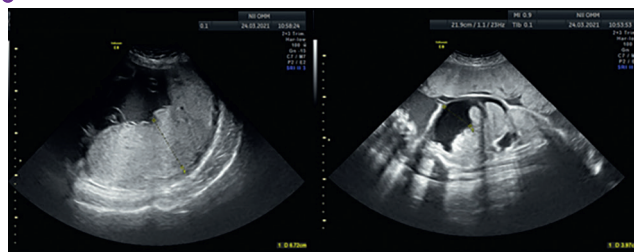


Рис. 2. Кистозно-аденоматозный порок развития легких типа I у плода

Fig. 2. Type I of cystic adenomatous lung malformation in the fetus

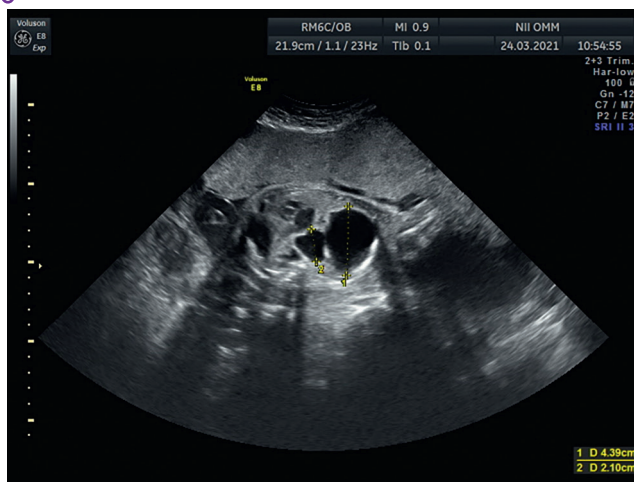
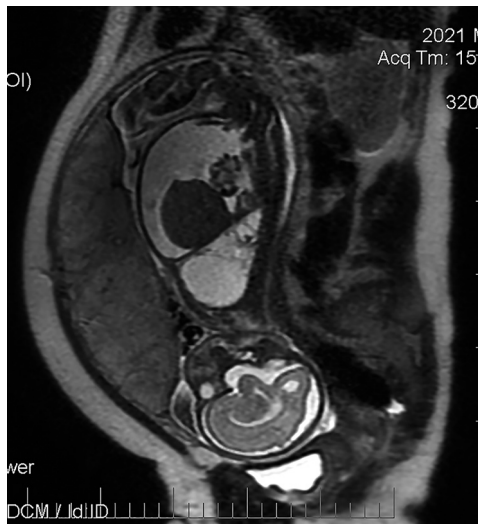


Рис. 3. Магнитно-резонансная томограмма: правое легкое плода представлено кистозно-аденоматозной перестройкой — конгломерат разнокалиберных тонкостенных кист, в брюшной полости определяется выпот

Fig. 3. Magnetic resonance imaging: the right lung of the fetus is represented by a cystic-adenomatous rearrangement — a conglomerate of thin-walled cysts of various sizes, an effusion is determined in the abdominal cavity



В 29 нед беременности проведена операция шунтирования кисты правого легкого и лапароцентез. В асептических условиях под контролем УЗИ проведен осмотр плода, выбрано удобное место для пункции. С целью обездвиживания плода в вену пуповины введено 0,1 мг ардуана. С целью обезболивания — фентанил (10 мг/кг веса). Произведена пункция кисты правого легкого (диаметром 50 мм), установлен стент «СДЕ-МЕД» (патент № 2728944 от 03.08.2020). Проведен лапароцентез с целью удаления жидкости из брюшной полости плода (объем удаленного транссудата 400 мл). Назначена антибактериальная терапия.

При посеве жидкости из кист плевральной полости, жидкости из брюшной полости плода, околоплодных вод микрофлора не обнаружена (рис. 4, 5).

В 30 нед беременности проведен контроль УЗИ. Отмечена положительная динамика в состоянии плода. В верхней доле правого легкого визуализировались 2 кисты диаметром 23 и 18 мм. Стент определялся в опорожненной кисте правого легкого. Левое легкое 42 × 21 мм. Кровоток в легких визуализируется. Ось сердца более 45°. Асцит 8 мм.

В 32 нед беременности отмечено купирование признаков неиммунной водянки плода.

В 37 нед беременности произошло преждевременное излитие околоплодных вод, выпадение ножки плода, в связи с чем пациентка была родоразрешена способом операции кесарево сечение. На операции на 5-й минуте извлечена доношенная девочка, 3050 г, 50 см, окружность головы 34 см, окружность груди 35 см, 6/7 баллов по Апгар.

Проведена оценка показателей физического развития по шкале INTERGROWTH-21: масса — 79,8 центиль, длина — 96,5 центиль, окружность головы — 90,3 центиль. Все показатели укладываются в ± 2 Z-scores, что свидетельствует

Рис. 4. Стент в крупной кисте

Fig. 4. Stent in a large cyst

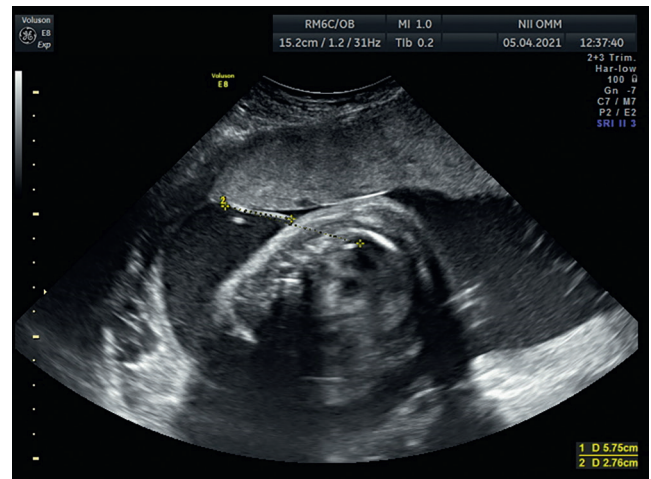
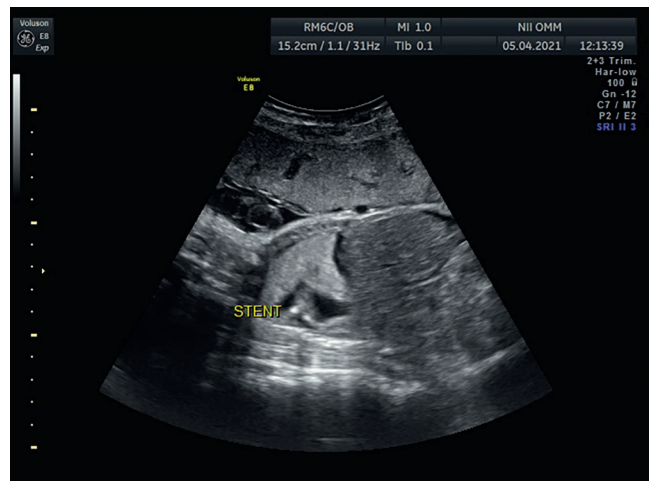


Рис. 5. Купировалась неиммунная водянка плода, киста опорожнилась

Fig. 5. Non-immune dropsy of the fetus was stopped, the cyst emptied



о соответствии гестационному сроку. Спонтанное дыхание у новорожденной появилось на 1-й минуте жизни. В связи с респираторными нарушениями оказаны первичная реанимационная помощь, респираторная поддержка методом СРАР-терапии (Continuous Positive Airway Pressure). Из родильного зала ребенок транспортирован в отделение реанимации и интенсивной терапии новорожденных. Выхаживался в условиях клинического инкубатора.

Основные показатели: частота дыхания — 56 в минуту, частота сердечных сокращений — 154 уд/мин, артериальное давление — 86/34 мм рт. ст., среднее — 56 мм рт. ст., SpO₂ — 97%. Показатели СРАР-терапии: FiO₂ — 50%, Flow — 8 л/мин. Оценка по Сильверману — 3 балла. Отмечались умеренные нарушения биомеханики дыхания, втяжение Гаррисоновой борозды и межреберий. При аускультации легких отмечалось умеренное ослабление дыхания справа, единичные хрипы справа. После рождения, по рекомендации хирурга, в асептических условиях стент был удален, наложена асептическая повязка. На рентгенограмме после рождения в прямой проекции и горизонтальном положении выявлены расширенные межреберные промежутки справа, крупная воздушная

полость от 2-го до 8-го ребра с толстой неравномерной стенкой, наружный контур четкий и ровный, внутренний контур четкий со спиклами. От уровня 2-го реберно-позвоночного сочленения до середины полости визуализировался стент. По нижнему краю полости определялись разнокалиберные сливные воздушные полости с неравномерной стенкой. Тень средостения смещена влево. Левое легочное поле пневматизировано, сосудистый рисунок сохранен. Слева синусы острые. Купол диафрагмы с четким контуром. Заключение: КАПРЛ. Состояние после стентирования крупной кисты справа. Смещение средостения влево. Все исследуемые лабораторные показатели (общий анализ крови, биохимический анализ крови, газы крови) были в пределах допустимых значений.

После стабилизации состояния (ВНСПАР в течение 1,5 ч, затем увлажненный, подогретый O₂ через высокопоточные канюли 2 ч, далее 40% увлажненный подогретый O₂ через лицевую маску), для дальнейшей диагностики и лечения в возрасте 4 ч жизни ребенок переведен в областную детскую клиническую больницу № 1. По результатам компьютерной томографии органов грудной клетки с контрастированием выявлены объемное кистозное образование нижней доли правого легкого и синдром внутригрудного напряжения со смещением средостения влево, что явилось абсолютным показанием для экстренной хирургической коррекции.

В возрасте 5 дней для коррекции выявленных изменений выполнены заднебоковая торакотомия справа, резекция нижней доли правого легкого с кистозным образованием, дренирование правой плевральной полости. Послеоперационный период у пациентки протекал без осложнений.

В течение 1-го года жизни пациентка регулярно наблюдалась в условиях научной поликлиники НИИ ОММ. У младенца фиксировались нормальные темпы физического и нервно-психического развития. Нарушений биомеханики дыхания, деформации грудной клетки, других респираторных нарушений не выявлено. При аускультации легких отмечено пуэрильное дыхание, равномерное проведение по всем полям, частота дыхания — 28 в минуту, частота сердечных сокращений — 124 уд/мин, SpO₂ — 98%. Лабораторные показатели (общий анализ крови, газы и электролиты крови, биохимический анализ крови, общий анализ мочи, копрограмма) в эпикризные сроки (3–6–9–12 мес) были в пределах физиологической нормы. Нарушений биомеханики дыхания не выявлено.

ОБСУЖДЕНИЕ

В нормальных легких периоды анатомического развития подразделяются на фазы. Железистая фаза эмбрионального развития — с 3-й по 16-ю неделю эмбрионального развития. Заканчивается железистая фаза формированием эпителия легких и дыхательных путей из эндодермального зачатка. Каналикулярная фаза эмбрионального развития — с 17-й по 23-ю неделю эмбрионального развития. Характеризуется формированием просвета бронхов, развитием и васкуляризацией будущих респираторных отделов легкого. Альвеолярная фаза эмбрионального развития начинается с 24-й недели эмбрионального развития и захватывает постнатальный период. В альвеолярную фазу происходит окончательное формирование альвеол [4]. Большинство случаев КАПРЛ возникает во время псевдоглангулярного периода альвеолярной фазы, когда происходит быстрое расширение проводящих дыхательных путей и периферических канальцев легких.

Существует несколько прогностических маркеров при обнаружении КАПРЛ у плода: размер и тип мальформации, наличие смещения средостения, полигидрамнион или водянка. Для определения целесообразности оперативного лечения также используют отношение объема кистозно-аденоматозного образования в легких (см³) к окружности головы плода (см). Плод с соотношением этих параметров более 1,6 имеет повышенный риск развития водянки, и такие случаи требуют особенно тщательного наблюдения и шунтирования крупной кисты легкого. Тогда как данное соотношение менее или равное 1,6 говорит о низком риске развития данного осложнения [8–10].

В нашем случае соотношение объема мальформации к окружности головки плода было равно 1,9. Очевидно, что при наличии неблагоприятных прогностических маркеров в таком случае должен был быть рассмотрен вопрос о внутриутробном хирургическом вмешательстве.

Однако следует отметить, что в настоящее время не существует универсальных рекомендаций по фетальной терапии больших кистозных образований легкого. Вмешательства на плоде в таких случаях могут быть обоснованы гестационным возрастом, размером КАПРЛ и наличием маркеров неблагоприятного исхода.

Микрокистозные мальформации легких имеют тенденцию к уменьшению, в отличие от макрокистозных поражений, которые могут увеличиваться, а также могут вызывать компрессию сердца с изменением гемодинамики и водянку плода из-за повышенного центрального венозного давления [4, 9, 12]. В литературе описаны случаи с неблагоприятными исходами именно при макрокистозных мальформациях легких. Следовательно, эти поражения могут потребовать внутриутробной терапии, в частности, установки торако-амниотического шунта [4, 10].

В настоящее время пренатальная терапия этих поражений включает аспирацию кисты, торако-амниотический шунт, инъекцию склерозирующего агента и открытую хирургию плода. Внутриматочная склеротерапия используется и для лечения кистозной гигромы и бронхолегочной секвестрации [13–15].

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Клиническая картина КАПРЛ разнообразна. У части пациентов при рождении отмечается дыхательная недостаточность, другие страдают рецидивирующей пневмонией в старшем возрасте. Симптоматика поражения органов дыхания появляется у большинства пациентов в течение первых 2 лет жизни. У половины новорожденных клиническая картина проявляется сразу после рождения на 1-й день жизни, кроме тех случаев, когда наблюдается значительный внутриутробный регресс. Своевременная внутриутробная коррекция данного состояния позволит снизить частоту заболеваний бронхолегочной системы у новорожденных.

Наш случай показал, что применение внутриутробного торако-амниотического шунтирования может купировать проявления водянки при КАПРЛ типа I у плода. Наибольшая киста после шунтирования уменьшилась, а впоследствии полностью опорожнилась, водянка плода купировалась, а сердечная функция плода улучшилась.

Таким образом, можно рекомендовать данный метод как декомпрессионную терапию в качестве внутриутробного лечения для плодов с макрокистозным типом КАПРЛ при начальных проявлениях водянки плода.

Вклад авторов / Contributions

Все авторы внесли существенный вклад в подготовку статьи, прочли и одобрили финальную версию перед публикацией. Вклад каждого из авторов: Костюченко Ю.Р. — обзор публикаций по теме статьи, написание текста рукописи; Косовцова Н.В. — хирургическое лечение, диагностические исследования, анализ полученных данных, разработка концепции и плана статьи, написание текста, финальное редактирование, утверждение рукописи для публикации; Павличенко М.В. — диагностические исследования, анализ полученных данных, разработка концепции и плана статьи, написание текста; Поспелова Я.Ю. — анализ полученных данных, сбор и обработка материалов, написание текста; Фёдорова Н.А. — сбор и обработка материалов, написание текста.

All authors made a significant contribution to the preparation of the article, read and approved the final version before publication. Special contribution: Kosovtsova, N.V. — surgical treatment, diagnostic studies, analysis of data obtained, development of the concept and plan of the article, text writing, final editing, approval of manuscript for publication; Pavlichenko, M.V. — diagnostic studies, analysis of the data obtained, development of the concept and plan of the article, writing the text; Pospelova, Ya.Yu. — analysis of the data obtained, collection and processing of materials, writing text; Fedorova, N.A. — collection and processing of materials, writing text.

Конфликт интересов / Disclosure

Авторы заявляют об отсутствии возможных конфликтов интересов.
The authors declare no conflict of interest.

Финансирование / Funding source

Авторы заявляют об отсутствии внешнего финансирования при проведении исследования.
This study was not supported by any external sources of funding.

Этическое утверждение / Ethics approval

Исследование проводилось при добровольном информированном согласии законных представителей пациента. Протокол исследования одобрен локальным этическим комитетом ФГБУ «Научно-исследовательский институт охраны материнства и младенчества» Министерства здравоохранения Российской Федерации (протокол № 4 от 04.08.2023).

The study was conducted with the informed consent of the legal representatives of the patients and the patients themselves. The research protocol was approved by the local Ethics Committee of of Urals Scientific Research Institute for Maternal and Child Care (protocol No. 4 of 04.08.2023).

Об авторах / About the authors


Косовцова Наталья Владимировна / Kosovtsova, N.V. — д. м. н., заведующая отделом биофизических и лучевых методов исследований ФГБУ «Уральский НИИ ОММ» Минздрава России. 620028, Россия, г. Екатеринбург, ул. Репина, д. 1. eLIBRARY.RU SPIN: 7402-9379. <https://orcid.org/0000-0002-4670-798X>. E-mail: kosovcovan@mail.ru

Павличенко Мария Васильевна / Pavlichenko, M.V. — к. м. н., старший научный сотрудник отделения физиологии и патологии новорожденных и детей раннего возраста, заведующая отделением детской реабилитации ФГБУ «Уральский НИИ ОММ» Минздрава России. 620028, Россия, г. Екатеринбург, ул. Репина, д. 1. eLIBRARY.RU SPIN: 5121-5672. <https://orcid.org/0000-0002-4941-9318>. E-mail: pavlichenko-mariya@mail.ru

Поспелова Яна Юрьевна / Pospelova, Ya.Yu. — врач ультразвуковой диагностики, аспирант ФГБУ «Уральский НИИ ОММ» Минздрава России. 620028, Россия, г. Екатеринбург, ул. Репина, д. 1. eLIBRARY.RU SPIN: 7790-4074. <https://orcid.org/0000-0002-9988-1199>. E-mail: jana.pospelova@yandex.ru

Фёдорова Наталья Анатольевна / Fedorova, N.A. — очный аспирант, врач — акушер-гинеколог ФГБУ «Уральский НИИ ОММ» Минздрава России. 620028, Россия, г. Екатеринбург, ул. Репина, д. 1. <https://orcid.org/0000-0003-1474-4978>. E-mail: fedotova.natasha95@mail.ru

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- Bunduki V., Ruano R., da Silva M.M. et al. Prognostic factors associated with congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Prenat. Diagn.* 2000;20(6):459–464. DOI: 10.1002/1097-0223(200006)20:6<459::aid-pd851>3.0.co;2-f
- Wilson R.D., Hedrick H.L., Liechty K.W. et al. Cystic adenomatoid malformation of the lung: review of genetics, prenatal diagnosis, and in utero treatment. *Am. J. Med. Genet. A.* 2006;140(2):151–155. DOI: 10.1002/ajmg.a.31031
- Mahle W.T., Rychik J., Tian Z.Y. et al. Echocardiographic evaluation of the fetus with congenital cystic adenomatoid malformation. *Ultrasound Obstet. Gynecol.* 2000;16(7):620–662. DOI: 10.1046/j.1469-0705.2000.00254.x
- Davenport M., Warne S.A., Cacciaguerra S. et al. Current outcome of antenally diagnosed cystic lung disease. *J. Pediatr. Surg.* 2004;39(4):549–556. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2003.12.021
- Nugent C.E., Hayashi R.H., Rubin J. Prenatal treatment of type I congenital cystic adenomatoid malformation by intrauterine fetal thoracostomy. *J. Clin. Ultrasound.* 1989;17(9):675–677. DOI: 10.1002/jcu.1870170912
- Adzick N.S., Harrison M.R., Crombleholme T.M. et al. Fetal lung lesions: management and outcome. *Am. J. Med. Genet.* 1998;179(4):884–889. DOI: 10.1016/s0002-9378(98)70183-8
- Adzick N.S., Harrison M.R., Flake A.W. et al. Fetal surgery for cystic adenomatoid malformation of the lung. *J. Pediatr. Surg.* 1993;28(6):806–812. DOI: 10.1016/0022-3468(93)90332-f
- Crombleholme T.M., Coleman B., Hedrick H. et al. Cystic adenomatoid malformation volume ratio predicts outcome in prenatally diagnosed cystic adenomatoid malformation of the lung. *J. Pediatr. Surg.* 2002;37(3):331–338. DOI: 10.1053/jpsu.2002.30832
- Clark S.L., Vitale D.J., Minton S.D. et al. Successful fetal therapy for cystic adenomatoid malformation associated with second-trimester hydrops. *Am. J. Obstet. Gynecol.* 1987;157(2):294–295. DOI: 10.1016/s0002-9378(87)80154-0
- Dommergues M., Louis-Sylvestre C., Mandelbrot L. et al. Congenital adenomatoid malformation of the lung: when is active fetal therapy indicated? *Am. J. Obstet. Gynecol.* 1997;177(4):953–958. DOI: 10.1016/s0002-9378(97)70300-4
- Schrey S., Kelly E.N., Langer J.C. et al. Fetal thoracoamniotic shunting for large macrocystic congenital cystic adenomatoid malformations of the lung. *Ultrasound Obstet. Gynecol.* 2012;39(5):515–520. DOI: 10.1002/uog.11084
- Ierullo A.M., Ganapathy R., Crowley S. et al. Neonatal outcome of antenally diagnosed congenital cystic adenomatoid malformations. *Ultrasound Obstet. Gynecol.* 2005;26(2):150–153. DOI: 10.1002/uog.1920
- Bermudez C., Perez-Wulff J., Bufalino G. et al. Percutaneous ultrasound-guided sclerotherapy for complicated fetal intralobar bronchopulmonary sequestration. *Ultrasound Obstet. Gynecol.* 2007;29(5):586–589. DOI: 10.1002/uog.3944
- Bermudez C., Perez-Wulff J., Arcadipane M. et al. Percutaneous fetal sclerotherapy for congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Fetal Diagn. Ther.* 2008;24(3):237–240. DOI: 10.1159/000151345
- Lee F.L., Said N., Grikscheit T.C. et al. Treatment of congenital pulmonary airway malformation induced hydrops fetalis via percutaneous sclerotherapy. *Fetal Diagn. Ther.* 2012;31(4):264–268. DOI: 10.1159/000336226 

Поступила / Received: 14.04.2023

Принята к публикации / Accepted: 02.10.2023