

УДК 616.89-02:[616.98:578.834.1]-06
<https://doi.org/10.20538/1682-0363-2023-1-164-169>

Загадочные «резиновые» слепки бронхов: малоизвестное заболевание в медицинской практике

Вишняк Д.А.¹, Шевченко О.В.^{1,2}, Зармаева М.Б.¹, Койлыбаева А.М.¹

¹ Сургутский государственный университет (СурГУ)
Россия, 628412, г. Сургут, пр. Ленина, 1

² «Клиническая больница «РЖД-Медицина» города Сургут»
Россия, 628412, г. Сургут, ул. Мечникова, 3

РЕЗЮМЕ

Представлено клиническое наблюдение пациентки, впервые обратившейся за медицинской помощью в возрасте 51 года по поводу приступообразного кашля с отхождением слепков бронхов. Верифицирован диагноз лимфопластического бронхита. Нозология, ранее не нашедшая подробного отражения в литературе, трудность верификации основного диагноза на фоне полисимптомной клинической картины, характеризующейся летальностью в 50–80%, сочетанное течение с новой коронавирусной инфекцией, а также резистентность к проводимой терапии и низкая настороженность медицинского сообщества определяют актуальность и ценность данного клинического наблюдения.

Ключевые слова: слепки бронхов, пластический бронхит, лимфопластический бронхит, бронхообструктивный синдром

Конфликт интересов. Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией настоящей статьи.

Источник финансирования. Авторы заявляют об отсутствии финансирования при проведении исследования.

Для цитирования: Вишняк Д.А., Шевченко О.В., Зармаева М.Б., Койлыбаева А.М. Загадочные «резиновые» слепки бронхов: малоизвестное заболевание в медицинской практике. *Бюллетень сибирской медицины*. 2023;22(1):164–169. <https://doi.org/10.20538/1682-0363-2023-1-164-169>.

Mysterious plastic bronchitis: a little-known disease in medical practice

Vishnyak D.A.¹, Shevchenko O.V.^{1,2}, Zarmaeva M.B.¹, Koilybaeva A.M.¹

¹ Surgut State University (SurGU)
1, Lenina Str., 628412, Surgut, Russian Federation

² Clinical Hospital “Russian Railways – Medicine” of Surgut
3, Mechnikova Str., 628412, Surgut, Russian Federation

ABSTRACT

The article presents a clinical case of a 51-year-old patient first seeking medical care with complaints of paroxysmal cough bringing up bronchial casts. The diagnosis of plastic bronchitis was verified. The disease which has not been well described in the literature, difficulty of verifying the underlying diagnosis due to polysymptomatic clinical

✉ Вишняк Диана Анатольевна, Diana100187@yandex.ru

presentation characterized by the mortality rate of 50–80%, COVID-19 coinfection, resistance to therapy, and little concern of medical specialists determine the relevance and value of this clinical case.

Keywords: bronchial casts, plastic bronchitis, lymphatic plastic bronchitis, bronchial obstruction syndrome

Conflict of interest. The authors declare the absence of obvious or potential conflicts of interest related to the publication of this article.

Source of financing. The authors state that they received no funding for the study.

For citation: Vishnyak D.A., Shevchenko O.V., Zarmaeva M.B., Koilybaeva A.M. Mysterious plastic bronchitis: a little-known disease in medical practice. *Bulletin of Siberian Medicine*. 2023;22(1):164–169. <https://doi.org/10.20538/1682-0363-2023-1-164-169>.

ВВЕДЕНИЕ

Возросший интерес к патологии органов дыхания в последние годы объясним пандемией новой коронавирусной инфекции (НКВИ) SARS-CoV-2. Однако причиной бронхообструктивного синдрома у взрослых могут быть и редкие нозологические формы, к числу которых относится и пластический бронхит.

Пластический бронхит (ПБ) (хронический фибринозный бронхит, псевдомембранозный бронхит, mucoid impaction, бронхит Хоффмана, лимфатический (лимфоидный, лимфопластический) бронхит) – хроническое рецидивирующее воспаление бронхов, характеризующееся образованием богатых фибрином пробок (в виде слепков бронхов, более плотных, чем обычные слизистые выделения), приводящих к обструкции дыхательных путей и дыхательной недостаточности [1–7].

Первые упоминания о бронхиальных слепках относятся ко временам Галена (131–200 гг. н. э.) и описаны им как «скопления экспекторированных сосудов из легких» [4, 8]. В 1750 г. Bussiere сообщил о посмертном обследовании пациента, страдающего туберкулезом, у которого также был обнаружен «бронхиальный гипс» *in situ* [4]. В 1902 г. M. Bettman представил несколько случаев ПБ с бронхиальными слепками, а в 1951 г. R. Shaw описал случаи mucoid impaction [8]. До 1960 г. в литературе было описано около 300 случаев [9, 10], а к 2008 г. зарегистрировано около 420 наблюдений ПБ [2, 10].

По запросу «пластический бронхит» в англоязычной текстовой базе данных PubMed в 2022 г. можно отыскать 513 публикаций, в то время как детализация поиска с указанием «пластический бронхит взрослых» выдает лишь четвертую часть – 127 публикаций. За период с 1965 по 2022 г. отмечен тренд роста числа рукописей, посвященных данной тематике, а наибольшее количество статей, обзоров, случаев приходится на последнее десятилетие.

В нашей стране до настоящего времени имеются лишь единичные публикации с описанием подобных клинических ситуаций, при этом большая часть из них, так же как и в зарубежной литературе, посвящена тематике педиатрического профиля. Это вполне объяснимо особенностями заболевания, которое диагностируется чаще у детей и в молодом возрасте, у взрослых заболевание регистрируется крайне редко [1–6, 8, 9]. Эти случаи в отсутствии инфекционного и аллергического генеза можно назвать казуистическими. Женщины болеют чаще, чем мужчины [5]. Вместе с тем есть мнение о небольшом преобладании мужчин [4]. Более высокая распространенность отмечается в сухих и жарких районах на фоне изменения физико-химических свойств секретов дыхательных путей в результате дегидратации слизистых [10].

К сожалению, масштабных эпидемиологических исследований ПБ у взрослых не проводилось. Истинная заболеваемость и распространенность не могут быть точно определены, поскольку существует вероятность того, что многие эпизоды заболевания остаются не диагностированными. Наиболее масштабный пул наблюдений ПБ лимфогенной природы у взрослых ($n = 44$) был опубликован в 2022 г. С. O’Leary и соавт. [11]. В России данные наблюдения наибольшей когорты пациентов с ПБ ($n = 20$) за период с 1990 по 2012 г. опубликованы В. Молодцовой и соавт. [5]. Японские ученые Y. Murata и соавт. в 2021 г. описали случай самой возрастной 74-летней пациентки, имеющей множественную миелому и ПБ, ассоциированный с перенесенной вирусной инфекцией (вирус гриппа А) [11]. Трагизм проблемы определяется не только гиподиагностикой данного состояния, а также и высоким процентом летальности, который, по мнению ряда авторов, находится в диапазоне 50–80% [4, 6, 7, 9].

Вопрос этиологии и патогенеза заболевания до настоящего времени остается полностью нерешенным (таблица).

Таблица

Этиология пластического бронхита*	
Этиология	Ассоциированные заболевания
Первичные и вторичные лимфатические аномалии	Врожденная сердечная недостаточность (пороки сердца) с хирургической коррекцией (операция Фонтана, Гленна, Блелока – Тауссига). Травма грудной клетки. Лимфатические аномалии, лимфангиоэктазии, лимфангиоматоз
Вирусные инфекции	Вирус гриппа А, аденовирусная инфекция, риновирусная инфекция, респираторно-синцитиальный вирус, вирус парагриппа, SARS-CoV-2
Другие заболевания легких	Бронхиальная астма, бронхолегочный аспергиллез, бронхоэктатическая болезнь, муковисцидоз
Бактериальные инфекции	Стрептококки, гемофильная палочка, микобактерия туберкулеза, клебсиеллы и др.
Гематологические заболевания	Острый респираторный дистресс-синдром при серповидноклеточной анемии
Профессиональные заболевания	Силикоз
Онкология	Саркома Капоши с возможным вовлечением лимфатических путей. Эндобронхиальные метастазы рака почки

*Переведено и адаптировано из [4], [13].

Клиническая картина ПБ включает кашель, одышку, хрипы в легких, отхождение мокроты в виде слепков бронхов. Течение заболевания осложняется возникновением ателектазов, бронхообструктивного синдрома и смертельной асфиксии [1, 3, 4]. Диагноз ПБ подтверждается наличием слепков, которые были откашляны или визуализированы во время фибро-бронхоскопии (ФБС). Диагностика требует полного клинико-лабораторного обследования [10]. Золотым стандартом верификации и коррекции лимфо-пластического бронхита является динамическая магнитно-резонансная лимфангиография с контрастным усилением и интранодальная лимфангиография, эмболизация легочных лимфатических сосудов [10, 11] (рис. 1).

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

Пациентка В., 51 год, уроженка г. Когалым, врач, впервые обратилась за медицинской помощью в апреле 2020 г. с жалобами на приступообразный кашель с отхождением мокроты в виде слепков бронхов плотной консистенции (каучукообразные, «резиновые») белого цвета (рис. 2) (преимущественно ночью и в утренние часы), иногда с обильным выделением жидкой мокроты молочно-белого цвета, «мучительный» кашель, «захлебывание» мокротой по ночам, повышение температуры тела до фебрильных значений, одышку с затрудненным выдохом при обычной физической нагрузке.

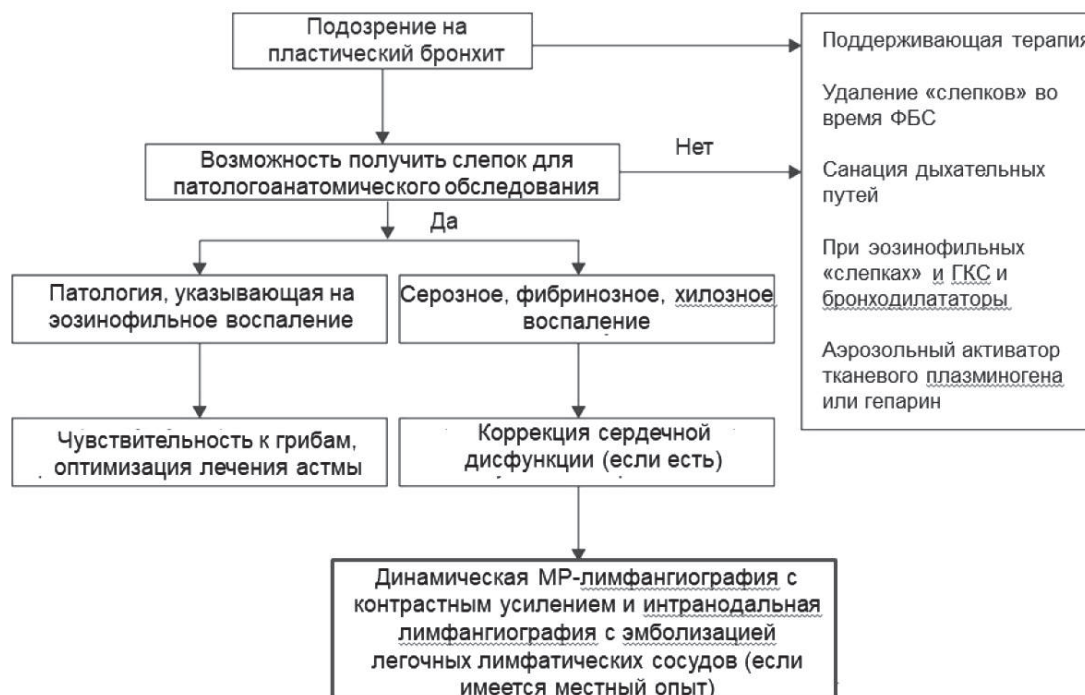


Рис. 1. Алгоритм диагностики и ведения пациентов с ПБ. Перевод из [4]

Заболела остро в марте 2020 г., когда появилась клиника острой респираторно-вирусной инфекции (повышение температуры тела до 38 °С, насморк, приступообразный кашель). На фоне проводимой терапии (противовирусная, отхаркивающая, муколитическая) была отмечена слабоположительная динамика в виде уменьшения кашля, снижения температуры тела, купирования ринореи. Спустя 2 нед пациентку стало беспокоить обильное отхождение мокроты молочного цвета, а также впервые появились мелкие, скудные «резинковые» слепки бронхов при откашливании. В анамнезе: гипертоническая болезнь и сахарный диабет 2-го типа верифицированы 5 лет назад. В 2010 г. проведена мастэктомия слева по поводу *cancer* молочной железы. При объективном осмотре обнаружены изменения: послеоперационный рубец в области левой молочной железы, без особенностей, индекс массы тела 33,3 кг/м², жесткое дыхание слева в нижних отделах легких и сатурация кислорода 96%.

На основании имеющихся данных был детектирован диагноз «острый бронхит», назначена антибактериальная терапия, без эффекта. Спустя месяц после контакта с больным НКВИ женщина отметила ухудшение состояния: повышение температуры тела до 39 °С, усиление кашля, увеличение объема выделяемой мокроты, появление одышки. Установлена НКВИ, проведен дифференциально-диагностический поиск с пневмониями иного инфекционного генеза, туберкулезом, аллергическим поражением легких. Примечательными оказались данные ФБС: слева устье верхнедолевого бронха обтурировано творожистыми некротическими массами, слизистая инъецирована, в просвете находилось умеренное количество мутной слизистой мокроты. Пациентка получала лечение согласно временным клиническим рекомендациям по НКВИ, а также симптоматическую терапию, проведена некрэктомия в ходе ФБС, а также санация дыхательных путей. После выписки состояние пациентки стремительно ухудшалось: выросла одышка, кашель стал носить надсадный характер, усиливался, равно как и объем отхаркиваемой мокроты, ночью, по утрам, вновь появились слепки бронхов в мокроте (рис. 2). Выделением слепка завершался каждый пароксизм кашля. Усугубление симптоматики послужило поводом для обращения в Уральский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии (23.06.2022–13.07.2022).

В ходе обследования по данным компьютерной томографии легких обнаружено двустороннее полисегментарное поражение легких в фазе регрессии, поражение левого легкого по типу «матового стекла», реактивная лимфоаденопатия внутригрудных

лимфатических узлов. Проведено цитологическое исследование слепков: тяжи слизи с группами клеток реактивно-измененного бронхиального эпителия, немногочисленные макрофаги с примесью лейкоцитов (слепки бронхов), примесь «путевой» крови. Данных за опухолевый рост нет (рис. 3). На основании имеющихся данных был заподозрен ПБ.

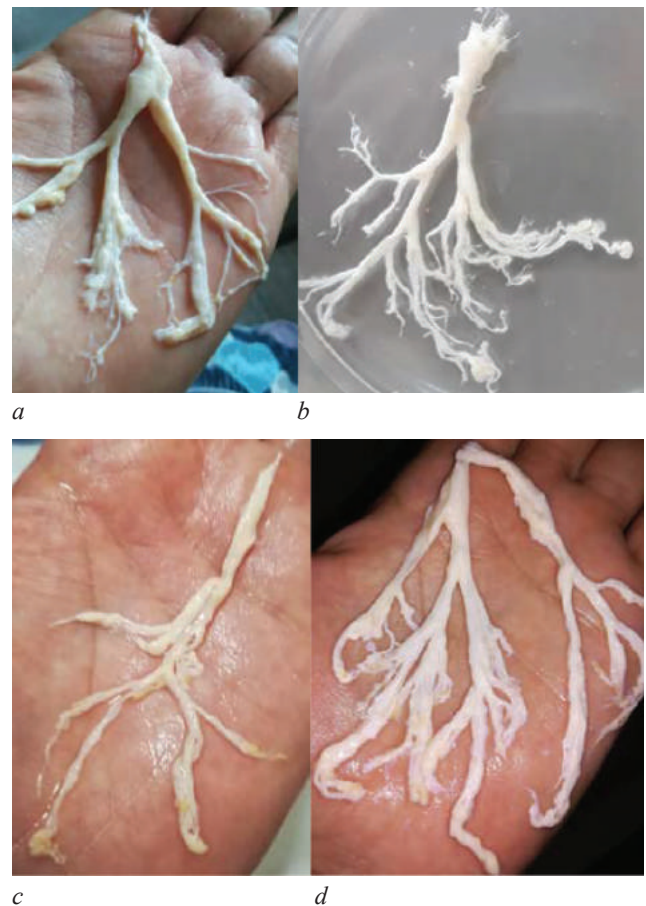


Рис. 2. Пациентка В., 51 год.
Мокрота в виде слепков бронхов

Женщина консультирована торакальным хирургом, доктором медицинских наук, профессором, членом-корреспондентом Российской академии наук, заведующим хирургическим отделением Клинического центра имени И.М. Сеченова Владимиром Дмитриевичем Паршиным. Также дистанционно проведена консультация торакального хирурга, профессора радиологии в больнице Пенсильванского университета, директора Центра лимфатической визуализации и вмешательств (г. Филадельфия, США) Максима Иткина. На основании признаков, которые можно отнести к критериям заболевания, а именно: «матовое стекло» одного легкого по данным компьютерной томографии, мокрота в виде слепков бронхов, лимфоаденопатия внутригрудных лимфа-

тических узлов, ожирение, усиление отхождения мокроты после приема жирной пищи, отсутствие убедительных данных за аллергический процесс, был подтвержден ПБ предположительно лимфатического генеза. Дополнительным критериальным фактором являлось бы обнаружение в промывных водах бронхов нейтрального жира, однако данное исследование не проводилось.

В феврале 2021 г. в отделении торакальной хирургии Университетской клинической больницы № 1 Сеченовского Университета была проведена перевязка грудного протока над диафрагмой, пересечение лимфатических сосудов корня левого легкого по типу скелетизации корня.

За 30 мин до проведения оперативного вмешательства с целью выявления нарушения герметичности лимфатического сосуда пациентке было предложено выпить жирную смесь (сметана (20%), сливки (10%) и сливочное масло) в объеме 200 мл. После

чего в момент вскрытия грудной клетки был выявлен лимфатический сосуд, из которого наблюдалась обильная лимфоррея. Также интраоперационно была обнаружена киста грудного лимфатического протока. В раннем послеоперационном периоде начато пероральное питание обезжиренной пищей с постепенным расширением диеты. Заключительный диагноз: киста грудного лимфатического протока (парабронхиальная коллатераль слева). Лимфопластический бронхит (хилобронхорея). Лимфаденопатия средостения. Рекомендовано: прием пищи с небольшим содержанием жиров (1 мес), расширение диеты спустя 1–1,5 мес, ограничение физической нагрузки в течение 2 мес, коррекция массы тела. Спустя год женщина не предъявляет жалоб, отмечает полное купирование вышеперечисленной симптоматики, диету не соблюдает. По данным компьютерной томографии легких (апрель 2022 г.), сохраняется фиброз легочной ткани левого легкого.

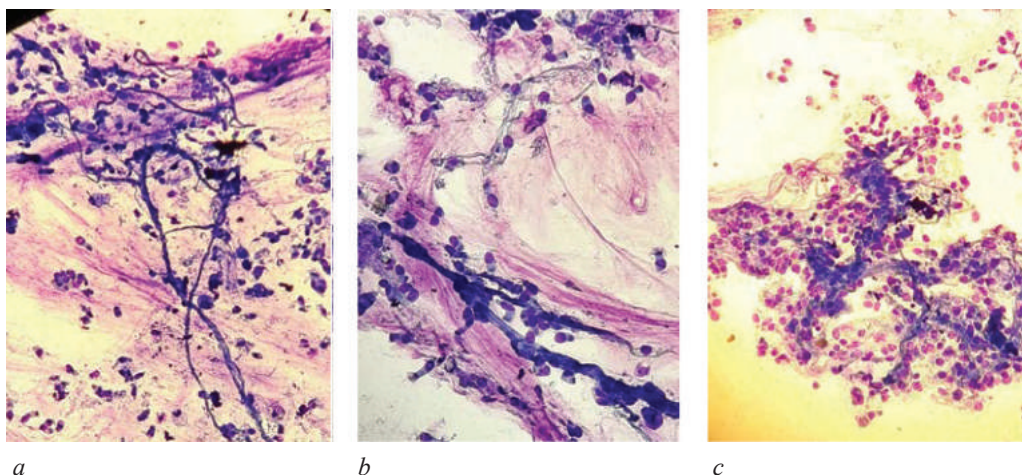


Рис. 3. Цитологическое исследование слепков бронхов пациентки В.

ОБСУЖДЕНИЕ

Трудности диагностики данного случая были связаны с клиническим полиморфизмом заболевания, малой информативностью специалистов в отношении данной патологии, сочетанным течением с НКВИ, которая могла стать как инициирующим маркером, так и, напротив, маскирующим фактором, а также отсутствием убедительных данных в ходе проведенного обследования за дефект лимфатического сосуда, обуславливающего симптоматику пациентки.

Остается открытым вопрос истинной этиологии патологических изменений у наблюдаемой женщины. Возможно воздействие нескольких причин и факторов. В последние годы когорта ученых считает одной из основных причин ПБ аномальную ком-

муникацию и попадание лимфатической жидкости в дыхательные пути. Обструкция лимфатического протока может объяснять ПБ при кардиохирургических вмешательствах, при сердечной недостаточности или травме [9, 12]. Многие случаи идиопатического ПБ у взрослых имеют лимфатическую основу, что дает основание переименовать диагноз у этих субъектов в «лимфатический ПБ, лимфопластический бронхит» [7, 11]. Не исключено, что проведенная 12 лет назад мастэктомия слева послужила причиной патологических изменений у данной пациентки. Повышение давления в лимфатических сосудах, наблюдаемое при врожденных лимфангиэкстазиях или лимфоангиоматозе, может привести к ретроградному лимфоток, дренированию лимфы в просвет бронхов и развитию хилоторакса [13].

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Заболевание, крайне скудно освещенное в литературе, сложность детекции диагноза на фоне полисимптомной клинической картины, маскирующейся под различные варианты бронхолегочной патологии и характеризующейся летальностью в 50–80%, сочетанное течение с НКВИ, неэффективность проводимой терапии и низкая настороженность медицинского сообщества определяют актуальность и ценность данного клинического наблюдения.

СПИСОК ИСТОЧНИКОВ

1. Скударнов Е.В., Лобанов Ю.Ф., Строзенко Л.А., Даулетова Я.А., Дорохов Н.А., Малюга О.М. и др. Пластический бронхит у ребенка (клиническое наблюдение). *Мать и дитя в Кузбассе*. 2020;1(80):53–58.
2. Eberlein M.H., Drummond M.B., Haponik E.F. Plastic bronchitis: a management challenge. *The American Journal of the Medical Sciences*. 2008;335(2):163–169. DOI: 10.1097/MAJ.0b013e318068b60e.
3. Mehta I., Patel K. Lymphatic Plastic Bronchitis. *The New England Journal of Medicine*. 2022;386(8):19. DOI: 10.1056/NEJMicm2107066.
4. Ntiamoah P., Mukhopadhyay S., Ghosh S. Recycling plastic: diagnosis and management of plastic bronchitis among adults. *European Respiratory Journal*. 2021;30(161):210096. DOI: 10.1183/16000617.0096-2021.
5. Молодцова В., Собченко С., Старевская С. Роль бронхоскопии в лечении пластического бронхита. *Врач*. 2015;7:8–12.
6. Mouhadi S., Taille C., Cazes A., Arrivé L. Plastic bronchitis related to idiopathic thoracic lymphangiectasia. Noncontrast magnetic resonance lymphography. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*. 2015;192(5):632–633. DOI: 10.1164/rccm.201503-0631im.
7. Itkin M.G., McCormack F.X., Dori Y. Diagnosis and treatment of lymphatic plastic bronchitis in adults using advanced lymphatic imaging and percutaneous embolization. *Ann. Am. Thorac. Soc.* 2016;13(10):1689–1696. DOI: 10.1513/AnnalsATS.201604-292OC.
8. Орлов А.В., Кузьмина М.С., Желенина Л.А., Матвеев В.С. Четыре случая пластического бронхита у детей 2–7 лет. Лечение с использованием бронхоскопии, аэрозоль илопроста и 3% раствора NaCl. *Вестник Северо-Западного государственного медицинского университета им. И.И. Мечникова*. 2014;6(2):113–119.
9. Камалтынова Е.М., Кривошеков Е.В., Янулевич О.С., Кавардакова Е.С. Пластический бронхит, ассоциированный с корригированным пороком сердца у ребенка. *Бюллетень сибирской медицины*. 2017;16(2):180–186. DOI: 10.20538/1682-0363-2017-2-180-186
10. Kunder R., Kunder C., Sun H. Pediatric plastic bronchitis: case report and retrospective comparative analysis of epidemiology and pathology. *Hincawi Publishing Corporation Case Reports in Pulmonology*. 2013;2013:649365. DOI: 10.1155/2013/649365.
11. O’Leary C., Itkin M., Roshkovan L., Katz S., Cao Q., Hershman M. et al. CT features of lymphatic plastic bronchitis in adults: correlation with multimodality lymphatic imaging. *Radiol. Cardiothorac. Imaging*. 2022;4(2):210048. DOI: 10.1148/rct.210048.
12. Yuichi M., Sayoko I., Yoriko S., Takanori O. Plastic bronchitis associated with influenza: an adult case. *Internal Medicine*. 2021;60(10): 647–648. DOI: 10.2169/internalmedicine.5313-20.
13. Healy F., Hanna B.D., Zinman R. Pulmonary complications of congenital heart disease. *Paediatric Respiratory Reviews*. 2012;13(1):10–15. DOI: 10.1016/j.prrv.2011.01.007.

Информация об авторах

Вишняк Диана Анатольевна – канд. мед. наук, доцент, кафедра внутренних болезней, СурГУ, г. Сургут, Diana100187@yandex.ru, <https://orcid.org/0000-0002-8473-5930>

Шевченко Ольга Владимировна – канд. мед. наук, ст. преподаватель, кафедра внутренних болезней, СурГУ; врач, «КБ «РЖД-Медицина» г. Сургут», г. Сургут, kov6767@mail.ru, <https://orcid.org/0000-0002-6814-951X>.

Зармаева Милена Бислановна – студент, СурГУ, г. Сургут, zarmaeva.m@mail.ru.

Койлыбаева Азиза Мурзаевна – студент, СурГУ, г. Сургут, koilybaeva2000@mail.ru

✉ **Вишняк Диана Анатольевна**, Diana100187@yandex.ru

Поступила в редакцию 27.06.2022;
одобрена после рецензирования 11.07.2022;
принята к публикации 08.09.2022