

СИНДРОМ СУАЙРА-ДЖЕЙМСА-МАКЛЕОДА: ПОСТВОСПАЛИТЕЛЬНЫЙ СТЕНОЗ ЛЕВОГО ВЕРХНЕДОЛЕВОГО БРОНХА, ЭМФИЗЕМА ВЕРХНЕЙ ДОЛИ ЛЕВОГО ЛЕГКОГО (КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ)



Н. В. Глуткина¹, А. И. Матвейчик¹, Л. В. Карева¹, Е. Я. Кулага², О. И. Гузаевская²,
Т. В. Добровольская², И. А. Мятлева², А. Н. Ярошенко³

¹Гродненский государственный медицинский университет, Гродно, Беларусь

²Гродненская университетская клиника, Гродно, Беларусь

³Гродненская клиническая больница № 2, Гродно, Беларусь

Представлен клинический случай наблюдения пациента с редким проявлением синдрома Суайра-Джеймса-Маклеода: поствоспалительного стеноза левого верхнедолевого бронха, эмфиземы верхней доли левого легкого. Проанализированы сложности постановки диагноза данной нозологической формы с анализом рентген-архива.

На основании приведенного примера клинического случая демонстрируется необходимость своевременности диагностики синдрома Суайра-Джеймса-Маклеода.

Ключевые слова: диагностика, синдром Суайра-Джеймса-Маклеода, эмфизема, бронх

Для цитирования: Синдром Суайра-Джеймса-Маклеода: поствоспалительный стеноз левого верхнедолевого бронха, эмфизема верхней доли левого легкого (клинический случай) / Н. В. Глуткина, А. И. Матвейчик, Л. В. Карева, Е. Я. Кулага, О. И. Гузаевская, Т. В. Добровольская, И. А. Мятлева, А. Н. Ярошенко, А. В. Глуткин // Журнал Гродненского государственного медицинского университета. 2023. Т. 21, № 4. С. 412-415. <https://doi.org/10.25298/2221-8785-2023-21-4-412-415>.

Введение

Синдром Суайра-Джеймса-Маклеода, также известный как синдром Суайра-Джеймса или синдром гиперпрозрачных легких, – редкий синдромом односторонней функциональной гипоплазии легочной сосудистой сети и эмфиземы с сопутствующими бронхоэктазами или без таковых [1]. Впервые данное состояние было описано одновременно Уильямом Мэтисоном Маклеодом в Англии (1954), а также врачом Полом Робертом Суайром и рентгенологом Джорджем Джеймсом в Канаде (1953) [2].

Данный синдром крайне редкий среди заболеваний легких, характеризуется рентгенологическим появлением гиперпрозрачности отдельной доли легкого или всего легкого в целом, у большинства пациентов наблюдается преимущественное поражение левого легкого [3].

Причинами, приводящими к данному синдрому, в настоящее время широко признаны осложнения детских респираторных инфекций, чаще всего облитерирующего бронхиолита или пневмонита. Возбудители рецидивирующих легочных инфекций – вирусы (корь, респираторно-синцитиальный вирус, грипп А, парамиксовирус, морбилливирус, аденовирус типов 3, 7 и 21) и бактерии (*Bordetella pertussis*, *Mycobacterium tuberculosis*, *Mycoplasma pneumoniae*) [4, 5].

Несмотря на 70-летнее открытие синдрома, частота встречаемости среди людей остается малоизвестной, что обусловлено как редкостью самого синдрома, так и недиагностированными случаями, которые лечатся как другие состояния, такие как астма или бронхоэктазы, из-за трудностей диагностики.

Синдром Суайра-Джеймса-Маклеода можно рассматривать как вариант течения постинфек-

ционного облитерирующего бронхиолита, при котором развивается необратимая обструкция периферических дыхательных путей, характеризующаяся подслизистым и перибронхиолярным фиброзом с деструкцией, рубцеванием и облитерацией периферических дыхательных путей. Именно одностороннее повреждение дыхательных путей – морфологическая основа синдрома и обуславливает необратимую обструкцию дыхательных путей. Облитерирующий бронхиолит развивается после тяжелого повреждения респираторного тракта, приводящего к сужению и/или полной облитерации мелких дыхательных путей. Определение «постинфекционный облитерирующий бронхиолит» отражает связь патологических изменений в бронхиолах с перенесенной ранее респираторной инфекцией [6].

Клинически синдромом Суайра-Джеймса-Маклеода может протекать бессимптомно, в то время как некоторые страдают от рецидивирующих легочных инфекций. Одним пациентам диагноз ставят в детстве, другим случайно, уже в зрелом возрасте, когда они проходят обследование по другой причине (например, симптомы астмы или рецидивирующие инфекции). При появлении симптомов наблюдаются рецидивирующие легочные инфекции или одышка при физической нагрузке. Другие симптомы включают хрипы, одышку при физической нагрузке, снижение переносимости физической нагрузки, кашель (часто продуктивный) с кровохарканьем или без него и плевритную боль в груди. Однако у большинства пациентов клиника протекает бессимптомно [7].

Описание клинического случая

Пациентка У. (54 года), поступила в отделение пульмонологии учреждения здравоохране-

ния «Гродненская университетская клиника» в марте 2023 г. по направлению онкофтизиопульмонологической комиссии данного учреждения с диагнозом: Синдром Суайра-Джеймса-Маклеода. Лобарная эмфизема верхней доли левого легкого, дыхательная недостаточность 0. При поступлении пациентка жалоб не предъявляла. Анамнез заболевания: при прохождении плановой рентгенографии органов грудной клетки были выявлены изменения.

По данным рентгенографии органов грудной клетки за 2016 г. (рис. 1): определяется повышенная пневматизация верхней доли левого легкого с обеднением на этом фоне легочного рисунка, на периферии который не прослеживается. Имеется выраженное обогащение, усиление и деформация легочного рисунка в нижней доле левого легкого, больше в проекции язычковых сегментов с уплотнением междолевой плевры. Средостение смещено вправо. Ретростернальное пространство расширено. Справа – без дополнительных патологических тенеобразований. Корни легких не структурны, не расширены. Диафрагма расположена низко, левый купол с плевро-диафрагмальной спайкой. Видимые синусы свободны. Сердце в поперечнике не расширено. В левой боковой проекции выбухает *conus pulmonalis*. Аорта уплотнена в области дуги.

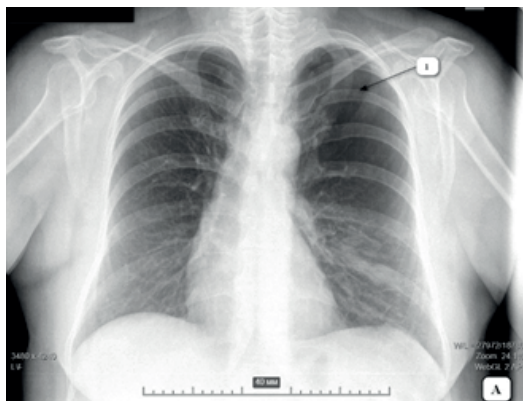


Рисунок 1. – Рентгенография органов грудной клетки (2016 г.). 1 – участок повышенной пневматизации верхней доли левого легкого

*Figure 1. – X-ray of the chest (2016)
1 – area of increased pneumatization of the upper lobe of the left lung*

Пациенту была выполнена трахеобронхоскопия: под местной анестезией (Sol. Lidocaini 2% – 10 ml) через правый нижний носовой ход осмотрено трахеобронхиальное дерево до устьев субсегментарных бронхов с обеих сторон. Карина острая, пульсаторно и дыхательно подвижная. Просвет бронхов свободно проходим. Слизистая бледно-розовая. В просвете умеренное количество слизистого секрета. Эндобронхиальных образований в пределах осмотренных бронхов не выявлено. Верхнедолевой бронх слева стенозирован. Взята биопсия. Заключение: стеноз верхнедолевого бронха слева.

Рентгеновская компьютерная томография органов грудной клетки с ангиограммой (рису-

нок 2 (а-в)): правое легкое без узелковых и интерстициальных изменений.

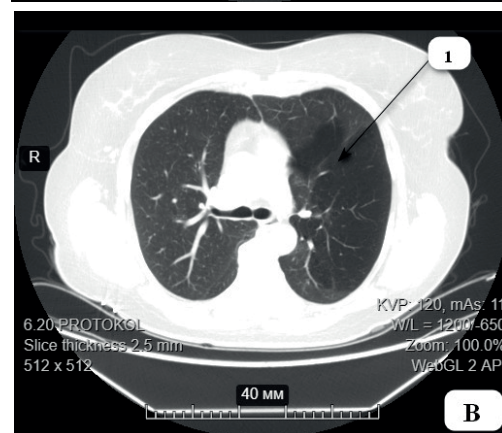
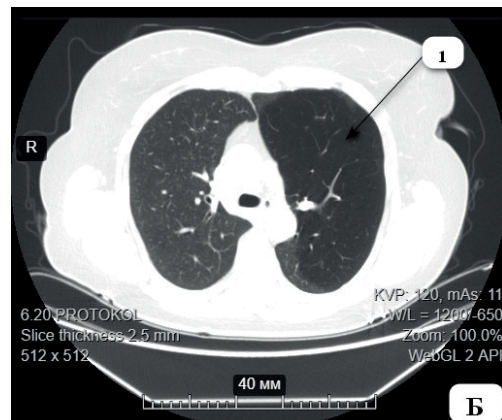
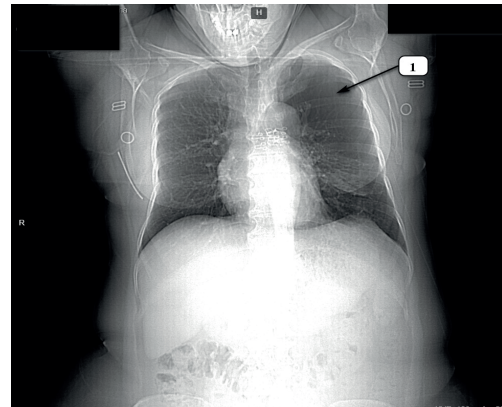


Рисунок 2. – Компьютерная томограмма органов грудной клетки пациентки У., 54 года. На томограмме органов грудной клетки (А) и аксиальных срезах (Б, В) определяется повышение воздушности и гиповаскуляризация участков легочной ткани (1)

Figure 2. – Computed tomography of the chest of the patient U., 54 years old. On the topogram of the chest organs (A) and axial sections (B, B), an increase in airiness and hypovascularization of areas of the lung tissue is determined (1)

Корень правого легкого не расширен. Аномалия развития: определяются атрезии сегментарных бронхов S1/2, S4-5 левого легкого, в устьевых сегментах просветы бронхов облитерированы, дистальнее места обструкции просветы расширены и выполнены содержимым, формируя картину "пальцев в перчатке" – (мукоцеле?) максимальным сечением 13 мм. Опреде-

ляется повышение воздушности и гиповаскуляризация сохраненных участков легочной ткани в S1/2 (вследствие коллатеральной вентиляции). Подобные изменения в язычковых сегментах уменьшены в объеме, сохраненные участки легочной паренхимы повышенной воздушности с гиповаскуляризацией. В S3 слева единичный узелок 3 мм. Корень левого легкого не расширен. В передне-верхнем средостении уплотненные клетчатки 7×15 мм. Увеличенных внутригрудных лимфоузлов не выявлено. Свободная жидкость в плевральных полостях не определяется. При КТ-ангиографии дефектов контрастирования крупных и средних легочных артерий не выявлено. Сечение легочного ствола 25 мм, правой легочной артерии – 19 мм, левой легочной артерии – 17 мм. Костно-деструктивных изменений на уровне исследования не выявлено. Заключение: КТ-картина аномалии развития левого легкого – атрезии сегментарных бронхов S1/2, S4-5. Единичный узелок в S3 левого легкого (поствоспалительного характера). Изменения в передне-верхнем средостении, вероятнее, поствоспалительного характера.

Результаты лабораторных исследований. Патогистологическое исследование: среди слизи – группы эпителиальных клеток.

Учитывая данные анамнеза, инструментальных методов обследования, выставлен диагноз: синдром Суайра-Джеймса-Маклеода: поствоспалительный стеноз левого верхнедолевого бронха, эмфизема верхней доли левого легкого.

Пациентке было рекомендовано использовать ингаляции формотерола фумарата 12 мкг длительно, с последующим контролем компьютерной томографии органов грудной клетки через шесть месяцев.

Обсуждение

В представленном клиническом случае описан пациент с бессимптомным течением синдрома Суайра-Джеймса-Маклеода. Однако клинические проявления данного синдрома могут привести к ошибочному диагнозу других заболеваний лег-

ких. Известно, что у пациентов с этим синдромом были ошибочно диагностированы хроническая обструктивная болезнь легких, астма, тромбоэмболия легочной артерии и пневмоторакс [2].

Синдром Суайра-Джеймса-Маклеода можно диагностировать по характерному обнаружению гиперпроницаемости легких на рентгенограмме грудной клетки, однако компьютерная томография грудной клетки – предпочтительный метод визуализации для подтверждения диагноза (выявляет участки повышенной прозрачности из-за снижения легочной перфузии легкого; среди нормальной паренхимы и бронхоэктазов могут быть неоднородные, слабо выраженные и гиповаскулярные участки; сканирование вентиляции/перфузии служит важным диагностическим методом в диагностике синдрома, показывающим соответствующий дефект вентиляции и перфузии пораженного легкого) [8].

Лечение, как правило, консервативное, включающее терапию и профилактику рецидивирующих инфекций путем вакцинации против гриппа и пневмококковой инфекции. Хирургическое вмешательство может быть необходимо, если инфекции на фоне бронхоэктазов в пораженных сегментах легких не поддаются лечению антибактериальными препаратами и в случае неконтролируемого кровохарканья. Прогноз, как правило, благоприятный [8, 9].

Выводы

Таким образом, представлен один из немногих случаев, описывающих диагностику синдрома Суайра-Джеймса-Маклеода во взрослом возрасте. Синдром всегда следует подозревать у взрослых с односторонней гиперпроницаемостью или эмфиземой легких с атипичным распределением на рентгенограмме грудной клетки и рецидивирующими легочными инфекциями в анамнезе. Выполнение компьютерной томографии грудной клетки может предотвратить ошибочный диагноз или задержку в постановке диагноза, особенно у пациентов, которые не реагируют на традиционную терапию.

Литература

1. Spectrum of manifestations of Swyer-James-MacLeod syndrome / J. Lucaya [et al.] // J Comput Assist Tomog. – 1998. – Vol. 22, № 4. – P. 592-597. – doi: 10.1097/00004728-199807000-00015.
2. Recurrent Exacerbations of Chronic Obstructive Pulmonary Disease Reveal Swyer-James-MacLeod Syndrome in a 63-year-old Patient / S. Chlapoutakis [et al.] // Cureus. – 2021. – Vol. 13, № 1. – P. e12601. – doi: 10.7759/cureus.12601.
3. Unilateral hyperlucent lung – Swyer-James syndrome: A case report and literature review / A. Dirweesh [et al.] // Resp Med Case Rep. – 2017. – Vol. 20. – P. 104-106. – doi: 10.1016/j.rmcr.2017.01.004.
4. Swyer-James (MacLeod's) syndrome following pertussis infection in an infant / G. Trimis [et al.] // Scand J Infect Dis. – 2003. – Vol. 35, № 3. – P. 197-199. – doi: 10.1080/0036554031000027017.
5. Adult diagnosis of Swyer-James-Macleod syndrome: retrospective analysis of four cases / H. S. Sen [et al.] // Respir Care. – 2014. – Vol. 59, № 4. – P. e51-e54. – doi: 10.4187/respcare.02552.
6. Swyer-James-MacLeod syndrome presenting as spontaneous pneumothorax in an adult: Case report and review of literature / L. Conti [et al.] // Radiol Case Rep. – 2021. – Vol. 16, № 5. – P. 1133-1137. – doi: 10.1016/j.radcr.2021.02.047.
7. Fontes, C. P. Swyer-James-MacLeod syndrome: an important differential diagnosis in adulthood / C. P. Fontes, M. R. Sousa // BMJ Case Reports. – 2021. – Vol. 14, № 9. – P. e246337. – doi: 10.1136/bcr-2021-246337.
8. Swyer-James-MacLeod syndrome-a rare diagnosis presented through two adult patients / S. Mehra [et al.] // Respirol Case Reports. – 2017. – Vol. 5, № 5. – P. e00245. – doi: 10.1002/rcr2.245.
9. Swyer-James-Macleod syndrome as a rare cause of unilateral hyperlucent lung: Three case reports / D. Machado [et al.] // Medicine (Baltimore). – 2019. – Vol. 98, № 6. – e14269. – doi: 10.1097/MD.00000000000014269.

References

1. Lucaya J, Gartner S, Garcia-Peña P, Cobos N, Roca I, Liñan S. Spectrum of manifestations of Swyer-James-MacLeod syndrome. *J Comput Assist Tomog.* 1998;22(4):592-597. doi: 10.1097/00004728-199807000-00015.
2. Chlapoutakis S, Garmpi A, Trakas N, Damaskos C, Georgakopoulou VE. Recurrent Exacerbations of Chronic Obstructive Pulmonary Disease Reveal Swyer-James-MacLeod Syndrome in a 63-year-old Patient. *Cureus.* 2021;13(1):e12601. doi: 10.7759/cureus.12601.
3. Dirweesh A, Alvarez C, Khan M, Shah N. A unilateral hyperlucent lung - Swyer-James syndrome: A case report and literature review. *Resp Med Case Rep.* 2017;20:104-106. doi: 10.1016/j.rmcr.2017.01.004.
4. Trimis G, Theodoridou M, Mostrou G, Kakavakis K. Swyer-James (MacLeod's) syndrome following pertussis infection in an infant. *Scand J Infect Dis.* 2003;35(3):197-199. doi: 10.1080/0036554031000027017.
5. Sen HS, Taylan M, Abakay O, Sezgi C, Cetincakmak MG. Adult diagnosis of Swyer-James-Macleod syndrome: retrospective analysis of four cases. *Respir Care.* 2014;59(4):e51-e54. doi: 10.4187/respcare.02552.
6. Conti L, Palmieri G, Delfanti R, Grassi C, Daccò MD, Capelli P. Swyer-James-MacLeod syndrome presenting as spontaneous pneumothorax in an adult: Case report and review of literature. *Radiol Case Rep.* 2021;16(5):1133-1137. doi: 10.1016/j.radcr.2021.02.047.
7. Fontes CP, Sousa MR. Swyer-James-MacLeod syndrome: an important differential diagnosis in adulthood. *BMJ Case Reports.* 2021;14(9):e246337. doi: 10.1136/bcr-2021-246337.
8. Mehra S, Basnayake T, Falhammar H, Heraganahally S, Tripathi S. Swyer-James-MacLeod syndrome-a rare diagnosis presented through two adult patients. *Respirol Case Reports.* 2017;5(5):e00245. doi: 10.1002/rcr2.245.
9. Machado D, Lima F, Marques C, Monteiro R. Swyer-James-Macleod syndrome as a rare cause of unilateral hyperlucent lung: Three case reports. *Medicine (Baltimore).* 2019;98(6):e14269. doi: 10.1097/MD.00000000000014269.

SWYER-JAMES-MCLEOD SYNDROME: POSTINFLAMMATORY STENOSIS OF THE LEFT UPPER LOBE BRONCHUS, EMPHYSEMA OF THE UPPER LOBE OF THE LEFT LUNG (CLINICAL CASE)

N. V. Hlutkina¹, A. I. Matveychik¹, L. V. Kareva¹, E. Ya. Kulaga², O. I. Guzaevskaya², T. V. Dobrovolskaya², I. A. Myatleva², A. N. Yaroshenko³

¹Grodno State Medical University, Grodno, Belarus

²Grodno University Clinic, Grodno, Belarus

³Grodno Clinical Hospital No. 2, Grodno, Belarus

A clinical case of observation of a patient with a rare case of the Swyer-James-McLeod syndrome: postinflammatory stenosis of the left upper lobe bronchus, emphysema of the upper lobe of the left lung is presented. The difficulties of making a diagnosis of this nosological form with the analysis of the X-ray archive are analyzed.

Based on the given example of a clinical case the need for timely diagnosis of the Swyer-James-McLeod syndrome is demonstrated.

Keywords: diagnostics, Swyer-James-McLeod syndrome, emphysema, bronchus.

For citation: Hlutkina NV, Matveychik AI, Kareva LV, Kulaga EYa, Guzaevskaya OI, Dobrovolskaya TV, Myatleva IA, Yaroshenko AN. Swyer-James-McLeod syndrome: post-inflammatory stenosis of the left upper lobe bronchus, emphysema of the upper lobe of the left lung (clinical case). *Journal of the Grodno State Medical University.* 2023;21(4):412-415. <https://doi.org/10.25298/2221-8785-2023-21-4-412-415>

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.

Соответствие принципам этики. Пациент подписал информированное согласие на публикацию своих данных.

Conformity with the principles of ethics. The patient gave written informed consent to the publication of his data.

Об авторах / About the authors

*Глуткина Наталия Викторовна / Hlutkina Natalia, e-mail: glutkina@mail.ru, SCOPUS: 55793907200

Матвейчик Андрей Игоревич / Matveychik Andrei, e-mail: gt_kafedra@yandex.ru

Карева Людмила Вацлавовна / Kareva Liudmila

Кулага Елена Яновна / Kulaga Elena

Гузаевская Ольга Ивановна / Guzaevskaya Olga

Добровольская Татьяна Викторовна / Dobrovolskaya Tatiana

Мятева Ирина Андреевна / Myatleva Iryna

Ярошенко Андрей Николаевич / Yaroshenko Andrei

* – автор, ответственный за переписку / corresponding author

Поступила / Received: 07.04.2023

Принята к публикации / Accepted for publication: 06.07.2023