

Изолированная висцеральная форма саркомы Капоши у реципиента почечного трансплантата

Клиническое наблюдение

Е.С. Иванова¹, Е.С. Столяревич^{1,2,3}, О.Ю. Евсюков¹, Г.В. Малышев¹, Л.Ю. Артюхина¹, Н.И. Белавина¹, Н.А. Томилина^{1,2}

¹ ГБУЗ «ГКБ №52 Департамента здравоохранения г. Москвы»,
123182, Москва, ул. Пехотная, д. 3, Россия

² Кафедра нефрологии ФПДО ФГБУ ФГОУ «Московский государственный медико-стоматологический университет им. А.И. Евдокимова», 127473, Москва, ул. Делегатская, д. 20, стр. 1, Россия

³ ФГБУ «ФНЦ Трансплантологии и искусственных органов им. академика В.И. Шумакова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 123182, Москва, Щукинская ул., д. 1, Россия

Isolated visceral form of Kaposi's sarcoma in renal graft recipient

Case report

E.S. Ivanova¹, E.S. Stolyarevich^{1,2,3}, O.Y. Evsyukov¹, G.V. Malyshev¹, L.Y. Artyukhina¹, N.I. Belavina¹, N.A. Tomilina^{1,2}

¹ Moscow City Hospital 52, 3 Pekhotnaya str, Moscow, 123182, Russian Federation

² Chair of Nephrology, A.I. Evdokimov Moscow State University of Medicine and Dentistry,
20 Delegatskaya str., bld. 1, Moscow, 127473, Russian Federation

³ V.I. Shumakov Federal Research Center of Transplantology and Artificial Organs,
1 Shchukinskaya str., Moscow, 123182, Russian Federation

Ключевые слова: саркома Капоши, почечный трансплантат, веретеновидные клетки, 8 тип вируса герпеса человека

Резюме

Саркома Капоши – это опухоль из лимфатических эндотелиальных клеток, впервые описанная в 1872 году Морицем Капоши. Это довольно распространенное злокачественное новообразование после трансплантации почки, чаще всего поражает кожу и слизистые оболочки. Частота саркомы Капоши у реципиентов почечных трансплантатов различается в зависимости от географических областей и составляет около 0,5% (от 0,06% до 4,1%). Могут наблюдаться кожная, кожно-висцеральная формы, однако изолированная висцеральная форма саркомы Капоши является редкостью у пациентов после трансплантации почки.

В статье представлен клинический случай саркомы Капоши с поражением легких, лимфатических узлов, тонкой кишки. Пациентка, 53 лет, после аллотрансплантации трупной почки была госпитализирована в наш стационар с лихорадкой, кашлем, одышкой, диареей. При обследовании обнаружены плевральный выпот, диффузные двусторонние изменения нижних отделов легких, внутригрудная и аксиллярная лимфаденопатия, спленомегалия и панцитопения. Особенностью являлось отсутствие кожных проявлений, характерных для саркомы Капоши, что значительно

Адрес для переписки: Екатерина Сергеевна Иванова
e-mail: katerineiv@mail.ru

Corresponding author: Ekaterina S. Ivanova
e-mail: katerineiv@mail.ru

затруднило диагностику заболевания. Однако, у пациентки наблюдалась рецидивирующая распространенная пятнисто-папулезная сыпь. Эти симптомы являются клиническими признаками HHV8-обусловленными вирусемическими синдромами. Диагноз саркома Капоши был поставлен после гистологического исследования лимфатического узла подмышечной области. После смерти пациентки при патологоанатомическом исследовании обнаружены также характерные для саркомы Капоши изменения в легких и тонкой кишке.

Этот случай иллюстрирует сложность диагностики изолированной висцеральной формы саркомы Капоши и необходимость ее исключения у пациентов после трансплантации почки даже при отсутствии кожных и слизистых поражений.

Abstract

Kaposi's sarcoma is a limphoangioproliferous tumor described for the first time in 1872 year by Moritz Kaposi. It is a relatively common malignancy after kidney transplantation, generally presents as characteristic dermatomucosal lesions. The frequency of Kaposi's sarcoma in renal recipients appears to be significantly different in various geographical areas and is about 0.5% (from 0.06% to 4.1%). Visceral organ involvement is common in conjunction with skin lesions; however, isolated visceral Kaposi's sarcoma is an uncommon disease among renal graft recipients.

This report introduces a case of Kaposi's sarcoma with lungs, lymph nodes, and small intestine involvements. A 53-years-old female renal graft recipient was admitted to our hospital with fever, cough, dyspnea, and diarrhea. The examination revealed pleural effusion and bilateral diffuse lesions in the lungs, intrathoracic and axillary lymphadenopathy, splenomegaly, pancytopenia. There were no specific skin manifestations for Kaposi's sarcoma, so it was difficult to diagnose. However, the patient had a recurrent widespread maculopapular rash. These symptoms are clinical signs of HHV8-related viremic syndromes. Kaposi's sarcoma was documented by histopathological evaluation of samples obtained from an axillary lymph node biopsy. Postmortem evaluation also indicated lung and small intestine involvements with Kaposi's sarcoma.

This case illustrates the complexity of diagnosing an isolated visceral form of Kaposi's sarcoma and the need to exclude it in kidney graft recipients in the absence of dermatomucosal lesions.

Key words: Kaposi's Sarcoma, renal graft, spindle shaped cells, type 8 of human herpes virus

Введение

Саркома Капоши – это сосудистая опухоль, образованная лимфатическими эндотелиальными клетками, пораженными 8 типом вируса герпеса человека (HHV8), также известным как вирус герпеса, ассоциированного с саркомой Капоши (KSHV) [1, 2]. Саркома Капоши является одним из самых распространенных злокачественных новообразований в посттрансплантационном периоде и обычно проявляется кожным поражением, которое характеризуется кожной пурпурой, красновато-синими или черными пятнами, бляшками и узлами. Другими клиническими проявлениями саркомы Капоши является поражение лимфатических узлов и внутренних органов [2]. Висцеральные поражения наблюдаются у 25-30% пациентов с почечными трансплантатами и у 50% пациентов с трансплантатами печени или сердца [3]. Мы представляем клинический случай пациентки 53 лет с изолированной висцеральной формой саркомы Капоши без кожных проявлений, которая была диагностирована через 7 месяцев после трансплантации почки.

Пациентка З., 53 лет, с терминальной ХПН в исходе поликистоза почек. В мае 2018 года была выполнена додиализная аллотрансплантация трупной почки. Функция трансплантата немедленная.

Иммуносупрессивная терапия: такролимус, микрофеноловая кислота, метилпреднизолон. Вводился АТГАМ №4. При выписке креатинин 120 мкмоль/л.

С августа 2018 года эпизоды жидкого стула, снижение уровня лейкоцитов крови до 3,3 тыс., нарастание креатинина крови до 156 мкмоль/л, повышение АД до 160/100 мм рт.ст. Диагностирован стеноз почечной артерии трансплантата, планировалось выполнение стентирования. В связи с лейкопенией и диареей временно отменена микрофеноловая кислота.

В сентябре 2018 года лихорадка, макрогематурия, обусловленные воспалением кист собственных поликистозных почек. Выполнена билатеральная нефрэктомия, проводился курс антибактериальной терапии. В связи с герпетической инфекцией с локализацией на верхней губе назначалась противовирусная терапия (ацикловир).

С ноября 2018 года появились отеки ног, лица. Принимала торасемид – с временным эффектом. С конца декабря 2018 года лихорадка до 38,2 с ознобом, сухой кашель, в связи с чем была госпитализирована в ГКБ № 52.

При поступлении состояние средней тяжести. Кожные покровы бледные, чистые, на коже правой половины шеи и правой щеки врожденная гемангиома. Умеренные отеки голеней и стоп. Температура

тела 37,7. ЧД 16. В легких дыхание жесткое, хрипы не выслушиваются. Тоны сердца: приглушены, ритм правильный. АД 130/80 мм рт.ст. ЧСС 80 в мин. Живот мягкий, безболезненный. Трансплантат почки плотно-эластичный, безболезненный. Диурез 1100 мл/сутки.

При обследовании в анализе крови выявлено: панцитопения (гемоглобин 67 г/л, тромбоциты 94 тыс., лейкоциты 3,4 тыс.), повышение креатинина крови до 181 мкмоль/л, мочевины 13,4 ммоль/л, повышение СРБ до 36,48 мг/л, билирубин 12,4 мкмоль/л, АСТ 7,2 Ед/л, АЛТ 4,3 Ед/л, холестерин 1,5 ммоль/л, ЛДГ 125 Ед/л, общий белок 54,9 г/л, альбумин 33,9 г/л, такролимус С0 5,9 нг/мл. В общем анализе мочи: протеинурия 0,2 г/л, лейкоцитурия 25 лей/мкл.

При поступлении не исключалось, что лихорадка обусловлена активным пиелонефритом трансплантата, назначена антибактериальная терапия. Продолжалась двухкомпонентная иммуносупрессивная терапия (такролимус, метилпреднизолон).

Учитывая панцитопению, взят анализ крови ПЦР к цитомегаловирусу, вирусу Эпштейн-Барр, вирусу простого герпеса 1 и 2 типа – отрицательно, ПЦР к парвовирусу В19 – отрицательно. Исследован уровень витамина В12 и фолатов в крови – в норме.

По данным компьютерной томографии органов грудной клетки и брюшной полости – двусторонний малый плевральный выпот, компрессионно-гиповентиляционные изменения задне-базальных отделов легких (Рисунок 1), малый гидрперикард, лимфаденопатия внутригрудных лимфоузлов, аксиллярная лимфаденопатия, увеличение селезенки, выпот в брюшной полости. С учетом неясного генеза отеочного синдрома выполнена ЭхоКГ – выраженная концентрическая гипертрофия миокарда ЛЖ, незначительное расширение левых отделов сердца, 250 мл

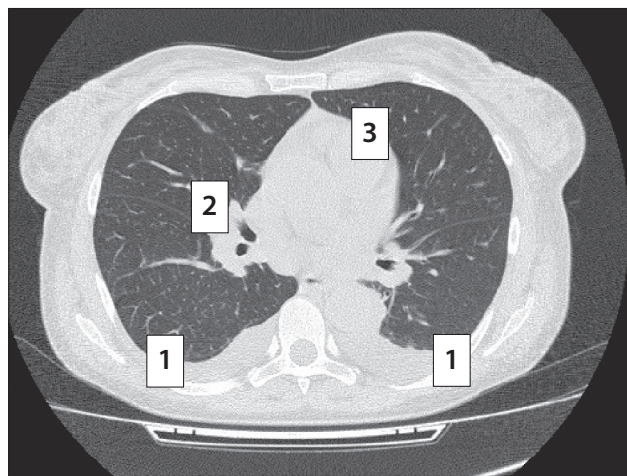


Рис. 1. Компьютерная томография органов грудной клетки: двусторонний малый плевральный выпот (1), лимфаденопатия внутригрудных лимфоузлов (2), малый гидрперикард (3)

Fig. 1. Chest CT scan showed bilateral pleural effusion (1), intrathoracic lymphadenopathy (2), small pericardial effusion (3)

жидкости в полости перикарда. По ЭГДС – очаговый гастрит, вены пищевода без особенностей.

Для исключения нагноения кист печени выполнена магнитно-резонансная томография органов брюшной полости – множественные кисты печени без признаков воспалительного содержимого в них, наличие жидкости в брюшной полости, гепатоспленомегалия.

На фоне проводимой терапии сохранялась лихорадка до 37,8, сухой кашель, появилась одышка, жидкий стул, анурия с повышением уровня креатинина крови до 377,4 мкмоль/л, нарастанием СРБ до 115 мг/л, снижением альбумина до 23 г/л, сохранялась панцитопения (гемоглобин 64 г/л, тромбоциты 38 тыс., лейкоциты 3,0 тыс.). Дважды у пациентки появлялась распространенная пятнисто-папулезная сыпь на коже всего тела со склонностью к сливанию, кожным зудом. Не исключалась токсикодермия, в связи с чем проводилась смена антибактериальной терапии, назначалась антигистаминная терапия. Сыпь регрессировала через 2-3 дня.

Генез лихорадки оставался неясен. С учетом наличия сыпи, панцитопении, лимфаденопатии, спленомегалии проводилось исключение лимфопролиферативного заболевания, системного заболевания соединительной ткани, вирусного гепатита, токсоплазмоза.

Выполнена трепанобиопсия костного мозга, по данным которой установлено, что изменения имеют реактивный (неопухольевый) генез, признаки специфического поражения при каком-либо лимфопролиферативном процессе не обнаружены. Анализ крови на М-компонент – не обнаружен. При цитологическом исследовании костного мозга – плазматические клетки 4%, встречаются единичные плазматические клетки с омоложенным хроматином. При иммунофенотипировании костного мозга – популяция плазматических клеток составляет 2%, атипичной популяции клеток не выявлено. При гистологическом исследовании биоптата кожи морфологических данных за грибовидный микоз нет, морфологическая картина не исключает васкулит/васкулопатию.

Взят анализ крови на АНФ, АТ к ДНК, С3, С4, р-ANCA, с-ANCA, криоглобулин, ревматоидный фактор – отрицательно. Анализ крови ПЦР к HCV, HBV – не обнаружено. Анализ крови на *Toxoplasma gondii* – отрицательный.

В генезе причины развития острой дисфункции трансплантата рассматривались тромбоз артерии трансплантата (на фоне предшествующего стеноза артерии трансплантата в условиях дегидратации из-за диарей), в связи с чем была выполнена компьютерная томография сосудов трансплантата с внутривенным контрастированием – данных за инфаркт трансплантата и тромбоз вены трансплантата не получено, картина гемодинамически значимого стеноза артерии трансплантата.

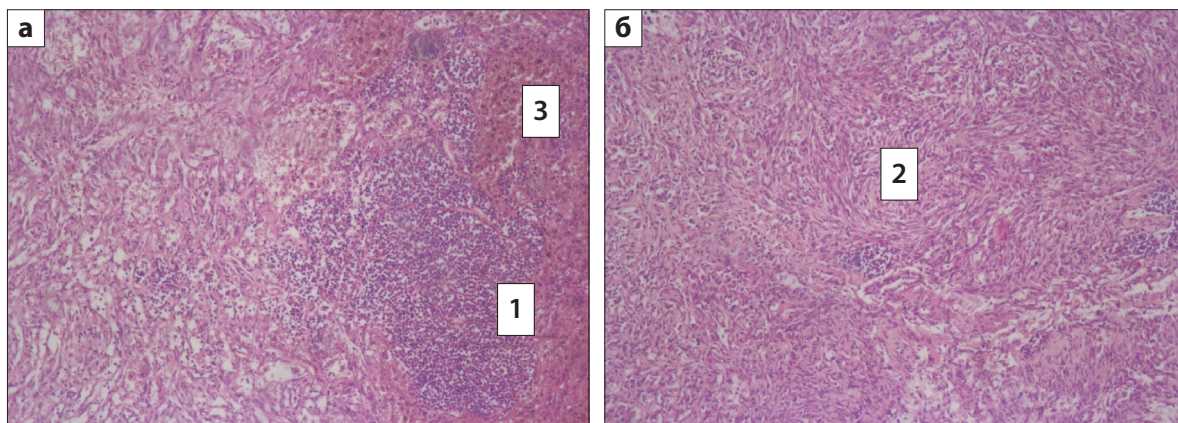


Рис. 2. Структура опухолевого поражения лимфатического узла. Диффузное замещение ткани лимфатического узла (1) опухолью, представленной атипичными полями веретеновидных клеток с неравномерной вакуолизацией цитоплазмы, формирующими «муароподобные» структуры (2), сосудистые щели с очагами эритростазов и кровоизлияниями (3).
Окраска гематоксилином и эозином, x200

Fig. 2. Tumor of the lymph node. Diffuse replacement of the lymph node tissue (1) with a tumor represented by atypical spindle cells with uneven vacuolization of the cytoplasm forming "moire-like" structures (2), vascular slots with erythrostatics and hemorrhages (3).
Hematoxylin and eosin stain, x200

Выполнена биопсия лимфатического узла из правой подмышечной области: в препарате фрагменты жировой ткани, среди которых определяются лимфатические узлы со стертым рисунком строения за счет замещения лимфоидной ткани опухолью, представленной муароподобными скоплениями веретеновидных клеток с фигурами митозов, пролиферацией сосудов капиллярного типа с эритростазом, кровоизлияниями разных сроков давности; отмечается экспансия опухолевой ткани в прилежащую жировую клетчатку (Рисунок 2). Морфологическая картина соответствует саркоме Капоши. При иммуногистохимическом исследовании лимфоузла опухолевые клетки экспрессируют CD34, фактор VIII (фокально), HHV-8 (ядерная реакция). Верифициро-

ван рост сосудистой опухоли в лимфатическом узле, по морфологической картине и иммунофенотипу соответствующей саркоме Капоши.

Таким образом, была диагностирована саркома Капоши, висцеральная форма с поражением лимфоузлов. Пациентке был отменен такролимус, снижена доза метипреда до 4 мг/сутки. По тяжести состояния в связи с олигоанурией, появлением дыхательной недостаточности пациентка была переведена в ОРИТ, где начаты сеансы гемодиализа, проводились гемотрансфузии эритроцитарной массы, СЗП, тромбоконцентрата. В связи с прогрессированием гипотонии начата вазопрессорная поддержка норадреналином. Несмотря на проводимую терапию, состояние оставалось крайне тяжелым,

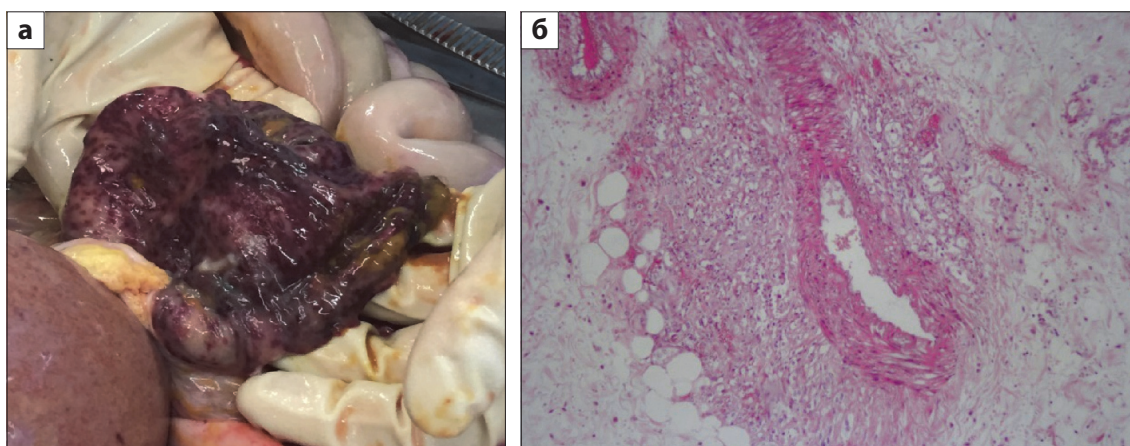


Рис. 3. Тонкая кишка: **а)** петля тонкой кишки с выраженной гиперемией и багровыми кровоизлияниями в серозной оболочке, брыжейке; **б)** в брыжейке определяется периваскулярные фокусы роста опухоли, представленной атипичными сосудистыми щелями, сформированными веретеновидными клетками с палочковидными ядрами, фигурами митозов, эозинофильной цитоплазмой, кровоизлияниями разных сроков давности. Окраска гематоксилином и эозином, x200

Fig. 3. Small intestine: **a)** the loop of the small intestine with severe hyperemia and crimson hemorrhages in the serous membrane and mesentery; **b)** there are perivascular foci of tumor growth represented by atypical vascular clefts formed by spindle-shaped cells with rod-shaped nuclei, mitosis figures, eosinophilic cytoplasm and hemorrhages of different periods of time in the mesentery. Hematoxylin and eosin stain, x200

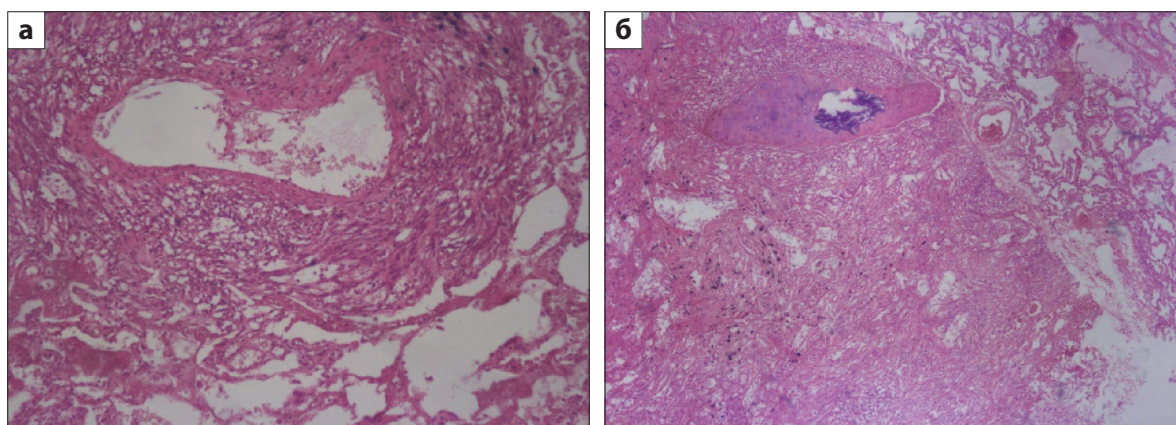


Рис. 4. Гистологические препараты легких: дилатация сосудов с периваскулярными очагами опухолевой пролиферации, представленной веретеновидными клетками, формирующими сосудистые щели с неравномерно выраженной лимфоидной и плазмоцитарной инфильтрацией, эритростазами. Окраска гематоксилином и эозином, x200

Fig. 4. Histological specimen of the lungs: dilatation of vessels with perivascular foci of tumor proliferation represented by spindle-shaped cells that form vascular fissures with uneven lymphoid and plasmocytic infiltration, erythrocyte extravasation. Hematoxylin and eosin stain, x200

и на фоне прогрессирующей дыхательной недостаточности и явлений отека мозга наступила смерть пациентки.

При патологоанатомическом исследовании в брюшной полости обнаружено 400 мл желтовато-красной жидкости. Макроскопически обращали на себя внимание изменения со стороны тонкого кишечника: петли кишки с выраженной гиперемией и багрового цвета кровоизлияниями в серозной оболочке, брыжейке, слизистая кишечника с множественными возвышающимися над поверхностью очагами в виде узлов темно-вишневого цвета до 0,4 см в диаметре, сливающимися между собой (Рисунок 3а). При гистологическом исследовании вокруг отдельных сосудов определяются муфты из атипичных веретеновидных клеток с лимфоидной и плазмоцитарной инфильтрацией, очаговое скудное накопление гемосидерина, диапедезные кровоизлияния/экстравазация эритроцитов (Рисунок 3б).

В плевральных полостях справа и слева обнаружено по 900 мл прозрачной желтоватой жидкости. При гистологическом исследовании легких часть тонкостенных сосудов резко расширена, вокруг новообразованных сосудов отмечается пролиферация вытянутых клеток типа фибробластов, по периферии мелкоочаговые лимфоидные инфильтраты (Рисунок 4). Множественные очаги новообразованных сосудов, преобладают мелкие, капиллярного типа, имеются артериолы, вены, лимфатические щели.

При гистологическом исследовании трансплантата почки диагностированы множественные инфаркты почки, развившиеся в результате тромбоза артерий среднего и малого калибра, а также ранние признаки сосудистого отторжения трансплантата (изолированный интимальный артериит) (Рисунок 5).

Таким образом, после аутопсии диагноз был сформулирован как висцеральная форма саркомы Капоши с поражением легких, лимфатических узлов, тонкой кишки.

Обсуждение

Саркома Капоши – это редкая форма злокачественной опухоли в общей популяции, но ее распространенность выше среди иммунокомпрометированных пациентов, включая пациентов со СПИД и реципиентов солидных органов [4]. Интенсивная иммуносупрессивная терапия значительно увеличивает риск развития саркомы Капоши после трансплантации [5]. Частота саркомы Капоши у реципиентов почечных трансплантатов составляет около 0,5% (от 0,06% до 4,1%) [6].

Посттрансплантационная саркома Капоши отражает комплекс взаимодействий вирусной инфекции HHV8, генетической предрасположенности и нарушения иммунитета у пациентов после трансплантации. У нашей пациентки было несколько факторов риска посттрансплантационной саркомы Капоши: возраст (старше 50 лет), срок после трансплантации (менее 1 года), применение антилимфоцитарного иммуноглобулина и такролимуса в качестве иммуносупрессивной терапии. К сожалению, сведения о ее серостатусе по HHV8 неизвестны, поскольку это исследование в настоящее время не входит в стандартный набор обследований реципиентов.

Клинические проявления саркомы Капоши у пациентов после трансплантации обычно ограничиваются поражением кожи нижних конечностей, но более распространенные кожные поражения не являются редкостью, а в некоторых случаях описывается висцеральная саркома Капоши [7]. Важно отметить, что у 90% реципиентов почечных

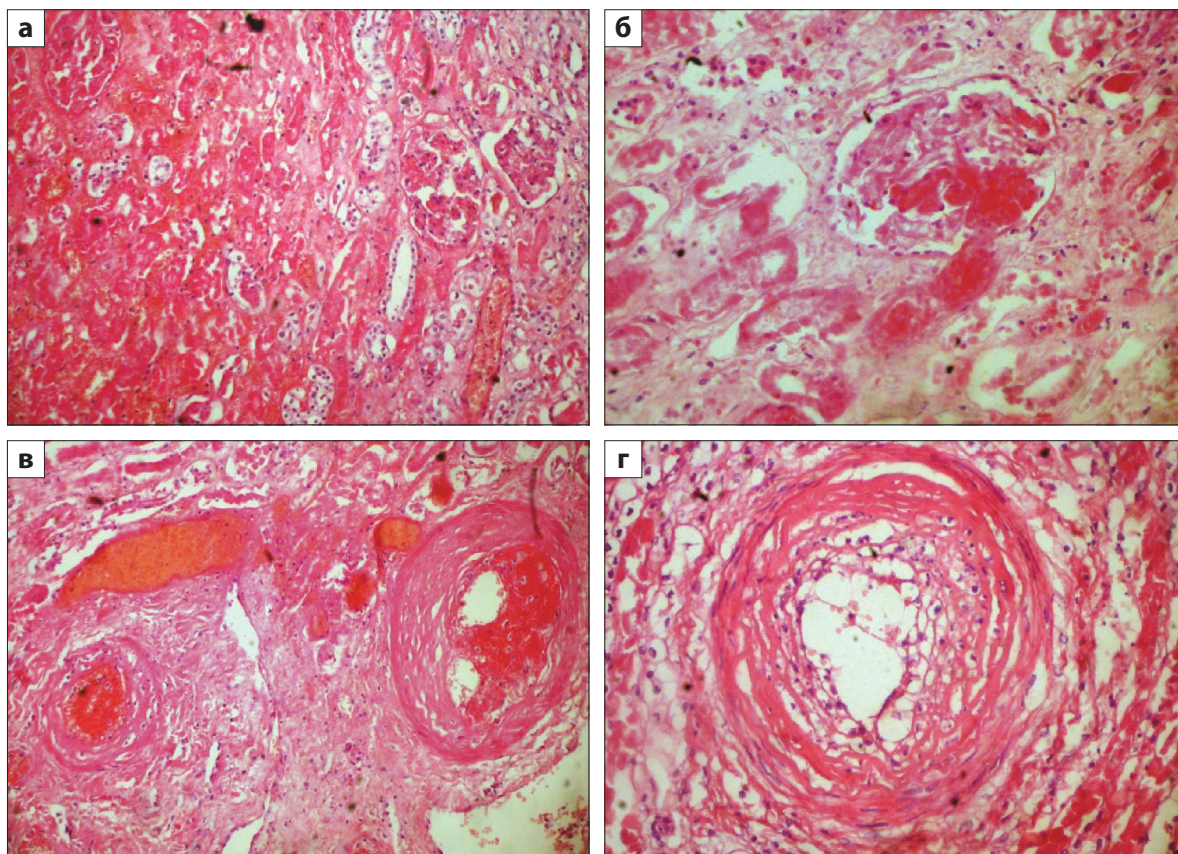


Рис. 5. Гистологические препараты трансплантата почки: **а)** зона инфаркта трансплантата почки, **б)** стазы крови со сладжированием эритроцитов, тромбоз отдельных капиллярных петель, **в)** тромбоз артерий малого и среднего калибра, **г)** интимальный артериит (сосудистое отторжение). Окраска PAS, x200/400

Fig. 5. Histological specimen of the kidney transplant: **a)** kidney transplant infarction, **b)** blood stasis with red blood cell clumping, thrombosis of individual capillary loops, **c)** arterial thrombosis of small and medium caliber, **d)** intimal arteritis (vascular rejection). PAS stain, x200/400

трансплантатов с саркомой Капоши есть поражение кожи и/или слизистых оболочек. Саркома Капоши с висцеральными проявлениями наблюдается у 40% пациентов с посттрансплантационной саркомой Капоши и в основном поражает желудочно-кишечный тракт, легкие и лимфатические узлы, но также могут быть поражены и другие органы. Первичные висцеральные повреждения в отсутствии кожных проявлений встречаются редко и наблюдаются у 10% пациентов с саркомой Капоши после трансплантации почки [8]. Интересно, что у реципиентов почечных трансплантатов висцеральные проявления наблюдаются реже, чем у реципиентов других солидных органов из-за относительно низкой иммуносупрессии [6]. При этом у мужчин посттрансплантационная саркома Капоши развивается в 1,5-3 раза чаще, чем у женщин [9]. Тем более редким является представленный случай изолированного висцерального поражения в отсутствии кожных проявлений, который наблюдался у женщины-реципиента трансплантированной почки.

Легочная форма саркомы Капоши обычно наблюдается на более поздней стадии заболевания в сочетании с поражением кожи и слизистых оболочек,

а также лимфаденопатией [10]. Нет четких данных о распространенности поражения легких у реципиентов почечных трансплантатов с саркомой Капоши, однако в некоторых исследованиях распространенность колеблется от 0 до 19% [11, 12]. Khan и Klapper в 1995 году [13] и Amin с соавторами в 2000 году [14] сообщили о двух случаях первичной легочной саркомы Капоши у реципиентов почечных трансплантатов. Оба пациента были с пневмонией, получили трансплантаты от трупных доноров, в качестве иммуносупрессивной терапии получали циклоспорин А и азатиоприн. При обследовании у обоих была лимфаденопатия и плевральный выпот. Ghorbani и соавторы сообщили о 38-летнем мужчине с изолированной легочной формой саркомы Капоши после трансплантации почки, у которого не было лимфаденопатии и плеврального выпота, однако в течение месяца сохранялись кашель, одышка, субфебрилитет с двусторонними диффузными изменениями в легких и который умер из-за массивного альвеолярного кровоизлияния [8]. В представленном случае у нашей пациентки поражение легких в рамках саркомы Капоши проявлялось субфебрилитетом, кашлем, одышкой, плевральным выпотом и диффуз-

ными двусторонними изменениями нижних отделов легких по данным рентгенографии и компьютерной томографии легких.

Предшествующие сообщения показали, что при гастроинтестинальной форме саркомы Капоши в основном поражаются верхние отделы желудочно-кишечного тракта, толстая кишка поражается редко [15]. Первоначально гастроинтестинальная форма саркомы Капоши проявляется небольшим количеством симптомов или их вообще нет. Редко это может привести к анорексии, потере веса, кровотечению из желудочно-кишечного тракта, диарее, кишечной непроходимости или перфорации [16]. У нашей пациентки наблюдалась рецидивирующая диарея как проявление поражения тонкого кишечника, которое было диагностировано после аутопсии макроскопически при обнаружении на слизистой тонкой кишки характерных очагов темно-вишневого цвета и микроскопически при выявлении веретеновидных клеток вокруг отдельных сосудов.

При агрессивных формах посттрансплантационной саркомы Капоши, которые характеризуются диссеминированным процессом с множественными поражениями внутренних органов, кожи и слизистых оболочек, могут наблюдаться гематологические проявления, в основном в виде тромбоцитопении, анемии и аномалий клеток-предшественников в костном мозге. У пациентов после трансплантации HHV-8 может вызывать необычные тяжелые клинические проявления, не связанные с опухолевым процессом, а обусловленные высоким уровнем вирусной нагрузки HHV-8, что часто связано с плохим прогнозом. Лихорадка, кожная пятнисто-папулезная сыпь и другие различные системные инфекционно-подобные знаки и симптомы в сочетании либо с поликлональной HHV-8-позитивной плазмоцитарной/плазмацитоидной лимфолифацией, поражающей лимфатические узлы и внутренние органы; либо с острой недостаточностью костного мозга, часто с плазмацитозом и признаками гемофагоцитарного синдрома, гепатоспленомегалией и тяжелой панцитопенией; либо значимым повышением печеночных ферментов. Все эти симптомы являются рецидивирующими клиническими признаками HHV8-обусловленных вирусемических синдромов [17]. В представленном случае у пациентки имела место лихорадка, рецидивирующая пятнисто-папулезная сыпь, а также тяжелая панцитопения без признаков гемофагоцитарного синдрома. Это свидетельствует о вероятной высокой вирусной нагрузке HHV-8, определение которой, к сожалению, не проводилось.

Уменьшение или отмена иммуносупрессивной терапии приводит к полной ремиссии саркомы Капоши у большинства пациентов [18, 19]. Наиболее эффективным лечением является конверсия с ингибиторов кальцинейрина (циклоsporин или такролимус) на сиролимус вследствие его антипролифе-

ративных свойств [19, 20]. Для пациентов, которые не ответили на это лечение, выбор терапии с препаратами второй линии (пегилированный липосомальный доксорубин, паклитаксел, а также винбластин в монотерапии или в комбинации с блеомицином, паклитакселом, пероральным этопозидом и гемцитабином) должен быть индивидуальным с учетом возраста пациента и его коморбидности [21, 22]. У нашей пациентки после постановки диагноза саркомы Капоши сразу был отменен такролимус, снижена доза метилпреднизолона до 4 мг/сутки. Обсуждался вопрос химиотерапии, однако тяжесть состояния пациентки с глубокой панцитопенией и прогрессированием гипотонии ограничили немедленное начало химиотерапии.

В представленном случае мы описали необычную изолированную висцеральную саркому Капоши с поражением легких, желудочно-кишечного тракта и лимфатических узлов. Случаи диссеминированной саркомы Капоши обычно наблюдаются при СПИД, но редко встречаются после трансплантации солидных органов.

Заключение

Саркома Капоши должна рассматриваться в дифференциальном диагнозе кожных поражений у пациентов после трансплантации солидных органов. Несмотря на то, что поражение кожи является наиболее частым проявлением саркомы Капоши, с серьезным прогнозом связана именно висцеральная форма саркомы Капоши. Поэтому необходимо системное обследование с оценкой внутренних органов у всех пациентов с кожной формой саркомы Капоши перед окончательным диагнозом. Также, исходя из представленного клинического случая, стоит помнить об изолированных висцеральных формах, верификация которых представляет собой непростою диагностическую задачу.

Авторы не имеют конфликта интересов

The authors declare no conflict of interests

Список литературы

1. Lebbé C., Legendre C., Francès C. Kaposi sarcoma in transplantation. *Transplantation Reviews*. 2008; 22: 252-261. doi: 10.1016/j.trre.2008.05.004.
2. Mariggio G., Koch S., Schulz T.F. Kaposi sarcoma herpesvirus pathogenesis. *Philos Trans R Soc Lond B Biol Sci*. 2017 Oct 19; 372(1732): 20160275. doi: 10.1098/rstb.2016.0275.
3. Prokop A.B., Ignacak E., Kuzniowski M., Kruszyna T., Okon K., Sulowicz W. Isolated intestinal Kaposi's sarcoma in a kidney transplant patient: Diagnostic difficulty. *Nephro-Urology Mon*. 2011; 3(3): 204-206.
4. Morris A.K., Valley A.W. Overview of the management of AIDS-related Kaposi's sarcoma. *Ann Pharmacother*. 1996;

30(10): 1150-1163. doi: 10.1177/106002809603001015.

5. Penn I. The changing pattern of posttransplant malignancies. *Transplant Proc.* 1991; 23(1 Pt 2): 1101-1103.

6. Ewward S., Kaniatakis J., Claudy A. Skin cancers after organ transplantation. *N Engl J Med.* 2003; 348(17): 1681-1691. doi: 10.1056/NEJMra022137.

7. Einollahi B. Unusual site of Kaposi sarcoma after kidney transplantation. *Iranian Journal of Kidney Diseases.* 2012; 6(3): 164-165.

8. Ghorbani A., Mozafari A., Karimi S., Ehsanpour A., Aref A. Isolated primary pulmonary Kaposi's sarcoma in a renal transplant recipient: A case report. *Transplant Proc.* 2007; 39(10): 3471-3473. doi: 10.1016/j.transproceed.2007.03.113.

9. Taberi S., Afsharmoghadam N., Berjis N., Okhovat A. Solitary laryngeal Kaposi sarcoma in a kidney transplant patient. *Iran J Kidney Dis.* 2012; 3:222-224.

10. Frances C. Kaposi's sarcoma after renal transplantation. *Nephrol Dial Transplant* 1998; 13:2768. doi: 10.1093/ndt/13.11.2768.

11. Lessan-Pezeshki M., Einollahi B., Khatami M.R., et al. Kidney transplantation and Kaposi's sarcoma: review of 2050 recipients. *Transplant Proc* 2001; 33:2818. doi: 10.1016/s0041-1345(01)02203-5.

12. Moosa M.R. Kaposi's sarcoma in kidney transplant recipients: a 23-year experience. *Q J Med* 2005; 98:205. doi: 10.1093/qjmed/hci028.

13. Khan G.A., Klapper P. Pulmonary haemorrhage following renal transplantation. *Thorax* 1995; 50:98. doi: 10.1136/thx.50.1.98.

14. Amin R.S., Munden R.F., Sandra A. et al. Kaposi sarcoma in a renal transplant patient. *J Thorac Imag* 2000; 15:297. doi: 10.1097/00005382-200010000-00012.

15. Saltz R.K., Kurtz R.C., Lightdale C.J. et al. Kaposi's sarcoma. Gastrointestinal involvement correlation with skin findings and immunologic function. *Digestive Diseases and Sciences.* 1984; 29(9):817-823. doi: 10.1007/BF01318424.

16. Rose H.S., Baltazar E.J., Megibow A.J., Horowitz L., Laubenstein L.J. Alimentary tract involvement in Kaposi sarcoma:

radiographic and endoscopic findings in 25 homosexual men. *American Journal of Roentgenology.* 1982; 139(4):661-666. doi: 10.2214/ajr.139.4.661.

17. Riva G., Luppi M., Barozzi P., Forghieri F., Potenza L. How I treat HHV8/KSHV-related diseases in posttransplant patients. *Blood.* 2012; 120:4150-4159. doi: 10.1182/blood-2012-04-421412.

18. Costa Ferreira P., Miguel Pereira J., Oliveira I., Pinho C., Cardoso A., Reis J. et al. Unusual Kaposi's sarcoma in a renal transplant recipient. *Nephrol Dial Transplant.* 2005; 20(12): 2830-2831. doi: 10.1093/ndt/gfi161.

19. Dejon J., Rabate C., Ewward S., Harwood C.A., Proby C., Güleç A.T., Seçkin D., Del Marmol V., Bouves-Bavinck J.N., Ferrándiz-Pulido C., Ocampo M.A., Barete S., Legendre C., Francès C., Porcher R., Lebbe C.: *Skin Care in Organ Transplant Patients Europe (SCOPE) group.* Management of Kaposi sarcoma after solid organ transplantation: A European retrospective study. *J Am Acad Dermatol.* 2019 Aug; 81(2):448-455. doi: 10.1016/j.jaad.2019.03.028.

20. Stallone G., Schena A., Infante B. Sirolimus for Kaposi's sarcoma in renal-transplant recipients. *N Engl J Med.* 2005; 352: 1317-1323. doi: 10.1056/NEJMoa042831.

21. Brambilla L., Miedico A., Ferrucci S. Combination of vinblastine and bleomycinas first line therapy in advanced classic Kaposi's sarcoma. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2006; 20: 1090. doi: 10.1111/j.1468-3083.2006.01730.x.

22. Lebbe C., Garbe C., Stratigos A.J., Harwood C., Peris K., Marmol V.D., Malvehy J., Zalaudek I., Hoeller C., Dummer R., Forsea A.M., Kandolf-Sekulovic L., Olab J., Arenberger P., Bylaite-Bucinskiene M., Vieira R., Middleton M., Levy A., Eggermont A.M., Battistella M., Spano J.P., Grob J.J., Pages C. Diagnosis and treatment of Kaposi's sarcoma: European consensus-based interdisciplinary guideline (EDF/EADO/EORTC); European Dermatology Forum (EDF), the European Association of Dermato-Oncology (EADO) and the European Organisation for Research and Treatment of Cancer (EORTC). *Eur J Cancer.* 2019 Jun; 114:117-127. doi: 10.1016/j.ejca.2018.12.036.

Дата получения статьи: 19.07.2020

Дата принятия к печати: 02.03.2021

Submitted: 19.07.2020

Accepted: 02.03.2021