



КОРОТКИЕ СООБЩЕНИЯ

© Коллектив авторов, 2015

ИДИОПАТИЧЕСКИЙ МУЛЬТИФОКАЛЬНЫЙ ОСТЕОЛИЗ: СЛУЧАЙ ОПЕРАТИВНОГО ЛЕЧЕНИЯ

А.П. Поздеев, Е.А. Захарьян, Д.С. Буклаев,
И.Н. Красногорский, Т.Ф. Зубаиров

ФГБУ «Научно-исследовательский детский ортопедический институт им. Г.И. Турнера»
Минздрава России; ГБОУ ВПО «Северо-Западный государственный медицинский университет
им. И.И. Мечникова» Минздрава России, Санкт-Петербург, РФ

Идиопатический остеолиз — редко встречающееся патологическое состояние, характеризующееся спонтанной, массивной и прогрессирующей резорбцией костной ткани. Массивный остеолиз является результатом пролиферации в костной и окружающих мягких тканях тонкостенных кровеносных и лимфатических сосудов, напоминающих капилляры. В статье представлены обзор литературы по данной проблеме и описание клинического наблюдения пациентки, успешно прооперированной с использованием разработанной в нашей клинике методики. Выполненные вмешательства позволили добиться восстановления целостности трубчатых костей и обеспечили условия для самостоятельного передвижения. Продемонстрирована возможность проведения реконструктивных оперативных вмешательств с целью восстановления опороспособности конечностей, которые целесообразно сочетать с терапией бисфосфонатами.

Ключевые слова: остеолиз, синдром Горхема, ложные суставы, костнопластические операции.

Idiopathic Multifocal Osteolysis: Case of Surgical Treatment

A.P. Pozdeev, E.A. Zakhar'yan, D.S. Buklaev, I.N. Krasnogorskiy, T.F. Zubairov

Turner Scientific and Research Institute for Children's Orthopedics; North-Western State Medical University named after I.I. Mechnikov, St. Petersburg, Russia

Idiopathic osteolysis is a rare disorder characterized by spontaneous, massive and progressive resorption of bone tissue. Massive osteolysis results from proliferation of blood and lymphatic vessels with thin walls, resembling capillaries, in the bone and surrounding soft tissues. Literature review on this problem and clinical case of a patient successfully operated on using the technique elaborated at our clinic are presented. Surgical interventions enabled to achieve the restoration of tubular bones integrity and ensured conditions for independent patient's movement. Possibility of the performance of reconstructive surgical interventions for the restoration of limb weight bearing ability that is reasonable to combine with bisphosphonate therapy.

Key words: essential osteolysis, Gorham's disease, pseudarthrosis, bone plastic operations.

Идиопатический остеолиз — редко встречающееся патологическое состояние, характеризующееся спонтанной, массивной и прогрессирующей резорбцией костной ткани. Массивный остеолиз происходит в результате пролиферации в костной и окружающих мягких тканях тонкостенных кровеносных и лимфатических сосудов, напоминающих капилляры [1–3].

Впервые заболевание было описано Д. Джексоном в 1838 г. Он наблюдал полный остеолиз плечевой кости у 18-летнего юноши [2–5]. К настоящему времени в мировой литературе представлены сообщения примерно о 200 случаях идиопатического остеолиза. Несмотря на то что заболе-

вание имеет доброкачественные гистологические характеристики, результатом его агрессивного течения являются ранняя инвалидизация и даже смерть пациента [2, 6]. Процесс остеолиза может начаться в любом возрасте, локализоваться в любом отделе скелета, но чаще всего поражаются верхние конечности, ребра и кости таза. Некоторые авторы отмечают спонтанное прекращение остеолиза после долгих лет течения заболевания без видимых на то причин. Сформировавшиеся костные дефекты самостоятельно замещаются фиброзной тканью. В результате формируются множественные многоплоскостные деформации костей и контрактуры суставов [3, 7].

Заболевание не имеет специфических симптомов и начинается с появления боли, отека и ограничения функции пораженного сегмента. Биохимические и гематологические показатели обычно соответствуют норме [2, 3, 8].

Диагноз устанавливается на основании данных комплексного клинического, лабораторного, рентгенологического и гистологического обследования путем исключения заболеваний с проявлениями вторичного остеолита (ревматоидный артрит, посттравматический остеолит, костные опухоли, остеомиелит и др.).

Поражение костной ткани начинается с возникновения интрамедуллярно и субкортикально расположенного рентгенопрозрачного фокуса по типу «пятнистого остеопороза» [9–12]. Патология характеризуется медленным, неравномерным, локальным прогрессированием патологических изменений, распространяющихся от центра к периферии. Процесс идет с вовлечением окружающих мягких тканей и характеризуется разрастанием фиброзной ткани, гиперваскуляризацией и, иногда, симптомами воспаления (отек, боль). Течение заболевания осложняется спонтанными патологическими переломами костей с отсутствием тенденции к консолидации костных фрагментов и формированием ложных суставов.

Этиопатогенез идиопатического остеолита не ясен. На сегодняшний день предложено несколько версий патогенеза заболевания: «молчащая» гамартома после минимальной травмы становится активной и обуславливает резорбцию кости [2, 13]; нарушение васкуляризации костной ткани, которое ведет к грануляционным изменениям [2, 11]; эндотелиальная дисплазия лимфатических и кровеносных сосудов [2, 14]; развитие локальной гипоксии и ацидоза, которые вызывают активизацию гидролитических энзимов [15]; повышенная активность остеокластов [16]; повышение уровня

интерлейкина-6, являющегося важным фактором костной резорбции [17].

Классификация. В основу существующих классификаций положены возраст пациента, локализация поражения, наличие сопутствующей патологии и прогноз течения заболевания. Наиболее полно патологический процесс отражен в классификации, предложенной Hardegger, Simpson и Segmueller в 1985 г. (см. таблицу) [18]. Ученые дополнили классификацию Torg и Steel (1968) [4] и описали пять типов идиопатического остеолита.

Общепринятого подхода к лечению данного заболевания не существует. Медикаментозная терапия с применением гормональных препаратов (эстрогенов, соматотропного гормона, кальцитонина), минералов (магния, кальция), витаминов (витамин D, B₁₂), аминокислот и даже переливание плацентарной крови оказались безуспешными [11]. Длительный прием бисфосфонатов и α_2 -интерферонов также не приносит желаемого результата [10, 17].

Из оперативных методик лечения наиболее широкое распространение получила резекция пораженного сегмента, чаще при монофокальном поражении, с последующим тотальным эндопротезированием [19, 20]. Некоторые авторы описывают случаи ампутации конечности. При вовлечении в процесс грудной клетки пациентам показана ранняя перевязка грудного лимфатического протока для профилактики развития хилоторакса [10, 21].

При тотальном поражении кости или множественных очагах прибегают к рентгенотерапии, которая направлена на склерозирование вновь образованных сосудов и профилактику дальнейшей гиперваскуляризации тканей. При этом используются довольно высокие дозы облучения (30–40 Гр). Эффективность этого метода лечения отмечается только на начальном этапе заболевания. Вопросы длительности клинического эффекта рентгеноте-

Классификация идиопатического остеолита по F. Hardegger и соавт. (1985) [18]

Тип	Описание
I. Наследственный мультифокальный остеолит с доминантным типом наследования	В возрасте 2–7 лет возникают спонтанная боль и отек, заболевание начинается в кистях и стопах. Карпотарзальный остеолит развивается в течение нескольких лет. В юношеском возрасте возможно самостоятельное прекращение процесса
II. Наследственный мультифокальный остеолит с рецессивным типом наследования	По своему течению имеет много общего с типом I, но может сочетаться с выраженным генерализованным остеопорозом
III. Ненаследственный мультифокальный остеолит в сочетании с нефропатией	Возникает в детстве. Характеризуется лизисом костей запястья и стопы на фоне выраженной протеинурии. Смерть больных обусловлена развитием почечной недостаточности и артериальной гипертензией
IV. Массивный остеолит Горхема (синдром Горхема — Стоута)	Монофокальное поражение. Может развиваться в любой части скелета и в любом возрасте. В очаге остеолита обнаруживается нормальная «гемангиоматозная ткань». Заболевание не носит наследственный характер, а также не связано с нефропатией. Имеет тенденцию к спонтанному прекращению процесса через несколько лет
V. Синдром Винчестера	Аутосомно-рецессивный тип наследования. Редкий вид остеолита кистей и стоп. Манифестирует в детстве. Характеризуется контрактурами суставов, низким ростом, кожными проявлениями, катарактой и остеопорозом. Протекает без нефропатии

рапии, а также риск развития онкологических заболеваний в результате получаемого облучения остаются неизученными [10, 11, 22].

Учитывая редкость заболевания, а также отсутствие в литературе сведений о благоприятных результатах применения при идиопатическом остеолите костнопластических операций, представляем собственное клиническое наблюдение.

Родители пациентки Н., 2004 года рождения (рис. 1), впервые обратились в НИДОИ им. Г.И. Турнера в возрасте девочки 4 лет (2008 г.) по поводу множественных деформаций ключиц, грудной клетки, предплечий, голени, отсутствия опорной функции нижних конечностей.

Из анамнеза известно, что девочка от первой беременности, срочных родов, протекавших на фоне анемии. При первичном осмотре в роддоме и ортопедом по месту жительства патологии со стороны костно-мышечной системы не выявлено. Ребенок рос и развивался соответственно возрасту. В возрасте 1 года появились и стали прогрессировать деформации нижних конечностей, девочка перестала ходить. На рентгенограммах нижних конечностей в возрасте 1 года 1 мес. был выявлен остеопериостоз дистальных эпифизов обеих большеберцовых костей, грубая деформация метафизов, дистальных отделов голени, варусная установка стоп. На рентгенограммах в возрасте двух лет был выявлен патологический перелом обеих лучевых костей в нижней трети. Далее в связи с прогрессированием явлений остеолита сформировались ложные суставы в средней и нижней трети костей предплечий с ульнарной девиацией кистей. Особого внимания заслуживает патологический очаг в верхней трети правой большеберцовой кости, который был выявлен в двухлетнем возрасте и при прогрессировании которого произошел патологический перелом (февраль 2008 г.). Через 2 мес. констатирована консолидация фрагментов кости без какого-либо лечения (рис. 2).

Ребенок был тщательно обследован по месту жительства, а также консультирован в НИИ педиатрии, где был поставлен диагноз: ренальная тубулопатия, витамин D-резистентный рахит. Выявлены аномалии развития почек: ротация правой почки, увеличение объема левой почки, левосторонняя пиелоколизэкстазия. Нейрогенная

дисфункция мочевого пузыря. В возрасте 4 лет девочка консультирована эндокринологом и генетиком. Были поставлены сопутствующие диагнозы: синдром мальабсорбции, целиакия; назначена соответствующая терапия. Был предположен диагноз «массивного остеолита» и исключен наследственный характер заболевания. *Ортопедический статус при поступлении.* Ребенок самостоятельно не ходил, передвигался только с опорой на коленные суставы. Отмечалась выраженная гипотрофия мягких тканей, диспропорциональный рост за счет укорочения туловища и нижних конечностей. При клиническом осмотре обращали на себя следующие изменения: укорочение и многоплоскостные деформации ключиц с выраженным сужением апертур, множественные деформации ребер, левосторонний грудопоясничный кифосколиоз. Выраженная варусная деформация обеих предплечий на границе средней и нижней трети (слева 90°, справа 80°) с ограничением ротационных движений. Варусноантекурвационная деформация костей обеих голени с патологической подвижностью на вершине деформации на границе средней и нижней третей. На этом же уровне определялись острые концы костных фрагментов костей голени, имели место рубцовые изменения мягких тканей вследствие многочисленных перфораций кожи концами костных фрагментов. Стопы по отношению к дистальным фрагментам голени находились в среднем физиологическом положении. Тонус мышц туловища, конечностей, а также сухожильные рефлексы были крайне низкие.

С целью верификации патологического процесса было проведено комплексное обследование: лабораторное (клинические, биохимические анализы крови и мочи), рентгенологическое, электрофизиологическое (реовазография, электронейрография); консультации неврологом и эндокринологом. Биохимическое исследование мочи выявило повышение уровня маркера остеолита (пирилинкс Д) в моче в 8 раз, снижение уровня фосфора в моче до 7,75 ммоль/л; в крови отмечалось повышение уровня щелочной фосфатазы до 238 Ед/л, фосфора — до 13,13 ммоль/л. По результатам поверхностной электронейромиографии констатирована сегментарная дисфункция регуляции на уровне C5–C8, снижение электрогенеза мышц предплечий и голени.

Рентгенологическое исследование. На рентгенограммах при поступлении в институт в четырехлетнем возрасте (2008 г.) отмечались: патологические переломы ребер в области крепления к позвоночнику (II–X ребер спра-



Рис. 1. Внешний вид пациентки в возрасте 10 лет.

Рис. 2. Рентгенограммы верхней трети левой большеберцовой кости.

а — патологический перелом, б — самостоятельно консолидированный перелом.

Рис. 3. Рентгенограмма грудной клетки пациентки в возрасте 8 лет.

ва, II–VII ребер слева), остеолит первых ребер с двух сторон, очаги остеолита и остеопороз лопаток, области плечевых суставов. Вследствие вовлечения в процесс позвоночника наблюдалась патологическая ротация тел позвонков в груднопоясничном отделе, очаги остеолита тел позвонков с развитием компрессии IX–XI грудных позвонков, уменьшение объема грудной клетки на уровне I–VII ребер (рис. 3). Имел место практически полный остеолит дистальных фаланг обеих кистей, поражение плюсневых костей. На рентгенограммах костей предплечий с обеих сторон визуализировались ложные суставы лучевой и локтевой костей с истончением концов костных фрагментов в средней трети и выраженной деформацией (слева 90°, справа 80°). На рентгенограммах костей голени с обеих сторон определялись ложные суставы обеих берцовых костей на границе средней и нижней третей с выраженной деформацией голени и истончением концов костных фрагментов.

Учитывая тот факт, что при патологическом переломе проксимального фрагмента левой большеберцовой кости в метафизарной зоне наступила спонтанная консолидация костных фрагментов, было решено провести хирургическое лечение, направленное на устранение ложных суставов и восстановление целостности берцовых костей. Была применена методика, используемая при патологических состояниях, сопровождающихся выраженным угнетением или полным отсутствием остеогенной активности в концах костных фрагментов, и предусматривающая адаптацию концов костных фрагментов боковыми поверхностями на значительном протяжении в сочетании с устойчивым остеосинтезом аппаратом Илизарова (Андрианов В.Л., Поздеев А.П., 1981).

В феврале 2009 г. в возрасте 5 лет произведено оперативное вмешательство: удлинение ахиллова сухожилия, открытый боковой компрессионный остеосинтез костей правой голени.

Техника операции. Ахиллово сухожилие, препятствующее устранению антекурвационной деформации, открыто рассечено во фронтальной плоскости и удлинено на 5 см. Выполнен разрез мягких тканей по наружной поверхности голени в нижней трети. Концы костных фрагментов малоберцовой кости выделены на протяжении 3 см. Произведен овальный разрез мягких тканей по передней поверхности голени на уровне средней и нижней третей длиной 6 см. На протяжении 4 см выделены концы костных фрагментов большеберцовой кости и адаптированы боковыми поверхностями. Через оба фрагмента во встречном направлении проведены спицы с опор-

ными площадками из кортикальной аллокости. Через проксимальный, дистальный метафизы большеберцовой кости проведены по две взаимно перекрещивающиеся спицы Киршнера. Одна спица проведена через пяточную кость. Смонтирован аппарат Илизарова. Одномоментно дана боковая компрессия костных фрагментов. Концы костных фрагментов малоберцовой кости заведены друг за друга на протяжении 3 см.

Через 4 мес. на контрольных рентгенограммах констатировали консолидацию костных фрагментов берцовых костей. В феврале 2010 г. проведен демонтаж аппарата внешней фиксации, иммобилизация конечности продолжалась в течение 2 мес. циркулярной гипсовой повязкой до средней трети бедра.

Аналогичное оперативное вмешательство на левой голени было выполнено в марте 2010 г. Аппарат Илизарова демонтирован спустя 4 мес. после операции при наличии явных признаков консолидации костных фрагментов.

Благодаря выполненным операциям удалось добиться консолидации костей голени. Ребенок был снабжен ортезами в виде съемных пластиковых тугоров с посадкой на седалищный бугор и смог самостоятельно передвигаться. Начиная с 2011 г., с целью уменьшения остеопороза, ребенок получает терапию препаратом памидроновой кислоты. Данные денситометрии свидетельствуют о возрастании минеральной плотности кости во всех отделах скелета, за исключением позвоночника и костей верхних конечностей.

В апреле 2012 г. выполнено оперативное вмешательство с целью устранения ложных суставов костей левого предплечья. Был использован тот же принцип, что и при вмешательстве на костях голени: адаптация концов костных фрагментов лучевой и локтевой костей боковыми поверхностями на протяжении 3 см, их боковая компрессия спицами с опорными площадками из кортикальной аллокости и остеосинтез костей предплечья аппаратом Илизарова. Аппарат демонтирован через 5 мес. в условиях наличия признаков сращения костных фрагментов лучевой кости (рис. 4).

Несмотря на проводимое комплексное лечение, в 2012 г. у пациентки констатировали резорбцию костной ткани в области дистального метадиафиза правой большеберцовой кости, дистальнее бывшего ложного сустава, с формированием варусной деформации и тугой формы ложного сустава (рис. 5).

Гистологическое исследование зоны ложного сустава костей голени. Было проведено гистологическое ис-



Рис. 4. Рентгенограммы костей левого предплечья после оперативного лечения.



Рис. 5. Рентгенограмма костей голени в возрасте 10 лет.

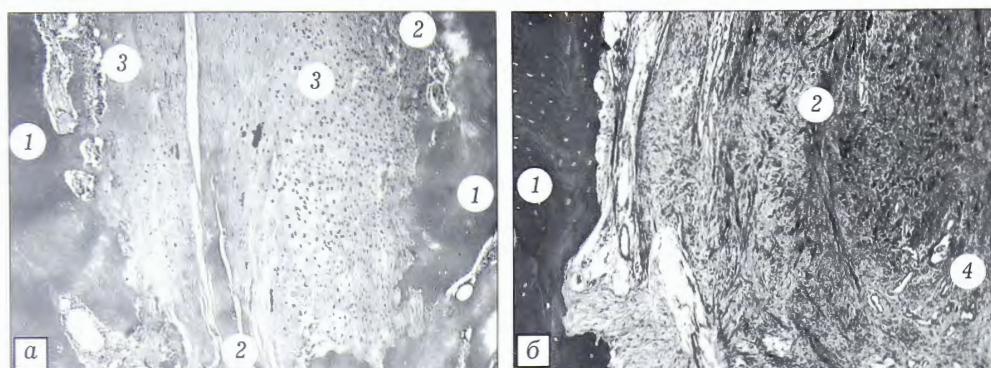


Рис. 6. Микрофотографии среза ложного сустава правой большеберцовой кости. х 150. Объяснения в тексте.

а — окраска гематоксилином и эозином, *б* — трехцветная окраска пикро-Маллори.

следование тканевых компонентов, принимающих участие в формировании ложного сустава: концов костных фрагментов костей голени (из области ложного сустава), соединительнотканной прослойки между ними, а также «остатков» окружавших ложный сустав мягких тканей.

Тканевые фрагменты, первично фиксированные в 10% растворе нейтрального формалина, подвергали декальцинации при помощи раствора трилона-Б с последующей заливкой в парафин по стандартной методике. Гистологические срезы тканей после депарафинирования окрашивали гематоксилином и эозином и по методу пикро-Маллори. Исследование гистологических препаратов осуществляли на световом микроскопе AXIO Scope.A1 («Zeiss», Германия).

Два концевых участка костей голени в основном имели строение губчатой костной ткани. (рис. 6, *а*, 1). В межбалочных пространствах губчатой кости содержалась довольно хорошо васкуляризированная, рыхлая клеточно-волоконистая соединительная ткань. На поверхности костных балок выраженной активности остеобластов не отмечено, увеличение количества остеокластов вокруг костных балок также не наблюдалось. Между двумя участками губчатой кости располагалась довольно массивная прослойка фиброзной ткани, в разных полях зрения несколько различающейся по плотности, но в целом довольно плотной (см. рис. 6, *а*, 2). Местами фиброзная ткань без четкой границы сменялась тканью, сформированной по типу волокнистого хряща (см. рис. 6, *а*, 3). В отдельных местах в фиброзной прослойке присутствовали очаговые скопления довольно многочисленных мелких кровеносных сосудов (типа капилляров, пре- и посткапилляров); по строению такие участки напоминают организующуюся грануляционную ткань (рис. 6, *б*, 4). Наружная поверхность одного из костных фрагментов была ограничена тонкой пластиной кортекса, сформированного компактной костной тканью. Кортикальная пластинка снаружи покрыта довольно толстым пластом склерозированного периоста, в котором местами были видны мелкоочаговые периваскулярные (преимущественно вокруг мелких сосудов) скопления немногочисленных лимфоцитов и плазматических клеток (см. рис. 6).

ОБСУЖДЕНИЕ

Совокупность клинико-рентгенологических данных, результатов морфологического исследования костной ткани зоны ложных суставов костей голени и повышение уровня маркера остеолита (пирилинкс Д) в моче в 8 раз позволили нам предположить у данной пациентки диагноз идиопатического мультифокального остеолита. Морфологическое исследование тканей области ложного сустава выявило такие же изменения, какие были ранее отмечены различными авторами, за-

нимающимися данной патологией: отсутствие выраженной остеобластической реакции, очаговые скопления многочисленных мелких кровеносных сосудов [14]. Ввиду наличия у пациентки аномалий развития почек мы предположили III тип идиопатического остеолита — ненаследственный мультифокальный остеолит в сочетании с нефропатией (см. таблицу). В нашем наблюдении не было получено данных за нефропатию, но опыт исследователей данной патологии свидетельствует о том, что у детей признаки нефропатии на фоне аномалии развития почек могут проявиться в более позднем возрасте [3]. В ходе обследования у пациентки удалось исключить такие заболевания, характеризующиеся вторичным остеолитом, как травма, остеомиелит, ревматоидный артрит, туберкулез костей.

Спонтанное сращение патологического перелома в верхней трети левой большеберцовой кости позволило надеяться на регенерацию костной ткани в отдалении от зоны ложного сустава. Для достижения консолидации костных фрагментов была выбрана методика, обеспечивающая адаптацию костных фрагментов боковыми поверхностями на значительном протяжении, а также их устойчивый длительный остеосинтез за счет использования спиц с опорными площадками из кортикальной аллокости. Последние исключают прорезывание спиц с напайками через костную ткань, позволяют в течение продолжительного времени осуществлять стабильный остеосинтез небольших по размеру костных фрагментов и служат костнопластическим материалом в процессе их перестройки.

Наши предположения были подтверждены данными наблюдения пациентки после выполненных вмешательств. Так, в послеоперационном периоде мы констатировали консолидацию костных фрагментов берцовых костей и лучевой кости, уплотнение костной структуры, утолщение диафизов пораженных костей. Вместе с тем в последующем мы отмечали разрежение костной ткани в области дистального метафиза правой большеберцовой кости с формированием тугой формы ложного сустава.

Результатом проведенного лечения стали возможность самостоятельно передвигаться, улуч-

шение качества жизни. Восстановление целостности большеберцовых и лучевой костей у больной с идиопатическим мультифокальным остеолитом демонстрирует возможность проведения реконструктивных оперативных вмешательств при клинко-рентгенологической картине стабилизации патологического процесса и отсутствии тяжелых соматических заболеваний. Хирургическое лечение целесообразно сочетать с терапией бисфосфонатами.

ЛИТЕРАТУРА [REFERENCES]

1. Baba A.N., Bhat Y.J., Paljor S.D., Nazir A., Khan N.A. Gorham's disease of femur. Indian J. Orthop. 2011; 45 (6): 565-8.
2. Оттева Э.Н., Кочерова Т.Ю., Шепичев Е.В. Синдром Горхема — Стоута: описания случая. Научно-практическая ревматология. 2010; 4: 83-6 [Otteva E.N., Kocherova T.Y., Shepichev E.V. Gorham - Stout syndrome: description of a case. Nauchno-prakticheskaya revmatologiya. 2010; 4: 83-6 (in Russian)].
3. Liu Y., Zhong D.R., Zhou P.R., Lv F., Ma D.D., Xia W.B. et al. Gorham-Stout disease: radiological, histological, and clinical features of 12 cases and review of literature. Clin. Rheumatol. 2014; Sep 18.
4. Torg J.S., DiGeorge A.M., Kirkpatrick J.A. Jr., et al. Hereditary multicentric osteolysis with recessive transmission: a new syndrome. J. Pediatr. 1969; 75: 243-52.
5. Ozbayrak M., Yilmaz M.H., Kantarci F., Ozer H., Harmanci K., Babacan M., Dervisoglu S. A case of an idiopathic massive osteolysis with skip lesions. Korean J. Radiol. 2013; 14 (6): 946-50.
6. Kilicoglu Z.G., Kizildemir Kis. N., Vardar Aker F., Berkman M.Z., Simsek M.M. Gorham disease of the craniocervical junction: X-ray, computed tomography, and magnetic resonance imaging findings. Spine J. 2013; 13 (5): e11-4.
7. Pazzaglia U.E., Andrini L., Bonato M., Leuther M. Pathology of disappearing bone disease: a case report with immunohistochemical study. Int. Orthop. 1997; 121: 303-7.
8. Goldfarb C.A., Steffen J.A., Whyte M.P. Idiopathic multicentric osteolysis: upper extremity manifestations and surgical considerations during childhood. J. Hand Surg. Am. 2012; 37 (8): 1677-83.
9. Gowin W., Rahmzadeh R. Radiologic diagnosis of massive idiopathic osteolysis (Gorham-Stout Syndrome). Rontgenpraxis. 1985; 38: 128-34.
10. Johnson P.M., McClure J.G. Observations of massive osteolysis: a review of the literature and report of a case. Radiology. 1958; 71: 28-42.
11. Mller G., Priemel M., Amling M., Werner M., Kuhlmeier A.S., Delling G. The Gorham-Stout syndrome (Gorham's massive osteolysis). A report of six cases with histopathological findings. J. Bone Joint Surg. Br. 1999; 81 (3): 501-6.
12. Scheller K., Herrmann-Trost P., Diesel L., Busse C., Heinzelmann C. Unspecific, idiopathic isolated osteolysis (Gorham-Stout syndrome) of the mandibular condylar process with its radiological, histological and clinical features: a case report and review of literature. Oral Maxillofac Surg. 2014; 18 (1): 75-9.
13. Knoch H.-G. Die Gorhamsche Krankheit aus klinischer Sicht. Zentralbl Chir. 1963; 18: 674-83.
14. Young J.W., Galbraith M., Cunningham J., Roof B.S., Vujic I., Gobien R.P. et al. Progressive vertebral collapse in diffuse angiomas. Metab. Bone Dis. Relat. Res. 1983; 5 (2): 53-60.
15. Heyden G., Kindblom L.-G., Nielsen J.M. Disappearing bone disease: a clinical and histological study. J. Bone Joint Surg. Am. 1977; 59 (1): 57-61.
16. Spieth M.E., Greenspan A., Forrester D.M., Ansari A.N., Kimura R.L., Gleason-Jordan I. Gorham's disease of the radius: radiographic, scintigraphic, and MRI findings with pathological correlation: a case report and review of the literature. Skeletal. Radiol. 1997; 26: 659-63.
17. Devlin R.D., Bone H.G., Roodman G.D. Interleukin-6: a potential mediator of the massive osteolysis in patients with Gorham-Stout disease. J. Clin. Endocrinol. Metab. 1996; 81: 1893-97.
18. Hardegger F., Simpson L.A., Segmueller G. The syndrome of idiopathic osteolysis: classification, review and case report. J. Bone Joint Surg. Br. 1985; 67: 89-93.
19. Garbers E., Reuther F., Delling G. Report of a rare case of Gorham-Stout disease of both shoulders: bisphosphonate treatment and shoulder replacement. Case Rep. Rheumatol. 2011; 2011: 565142.
20. Buerfeind A., Bürger H., Schlüter-Brust K., Eysel P., Delank K.S. Gorham-Stout syndrome (GSS) with fulminant aseptic osteonecrosis of the shoulder. Orthopade. 2010; 39 (10): 1003-8.
21. Deveci M., Inan N., Corapçoglu F., Ekingen G. Gorham-Stout syndrome with chylothorax in a six-year-old boy. Indian J. Pediatr. 2011; 78 (6): 737-9.
22. Heyd R., Rabeneck D., D rnenburg O., Tselis N., Zamboglou N. Gorham-Stout syndrome of the pelvic girdle treated by radiation therapy: a case report. Strahlenther Onkol. 2011; 187 (2): 140-3.

Сведения об авторах: Поздеев А.П. — доктор мед. наук, профессор, науч. руководитель отделения костной патологии НИДОИ им. Г.И. Турнера; Захарьян Е.А. — очный аспирант кафедры детской травматологии, ортопедии СЗГМУ им. И.И. Мечникова; Буклаев Д.С. — канд. мед. наук, зав. отделением артрогрипоза НИДОИ им. Г.И. Турнера; Красногорский И.Н. — канд. мед. наук, доцент, врач-патологоанатом высшей категории НИДОИ им. Г.И. Турнера; Зубаилов Т.Ф. — канд. мед. наук, науч. сотр. отделения костной патологии НИДОИ им. Г.И. Турнера.

Для контактов: Захарьян Екатерина Анатольевна. 191015, Санкт-Петербург, ул. Карташыхина д.19, кв. 82. Тел.: +7 (911) 095-88-81. E-mail: zach-2008@mail.ru.