

ВРОЖДЕННЫЙ КИСТОЗНО-АДЕНОМАТОЗНЫЙ ПОРОК РАЗВИТИЯ ЛЕГКОГО. ЭМБРИОЛОГИЯ ЛЕГКОГО. КЛАССИФИКАЦИЯ. АНТЕНАТАЛЬНАЯ И ПОСТНАТАЛЬНАЯ ДИАГНОСТИКА

Костюченко А.С.¹, Писклаков А.В.¹

¹ Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Омский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации

Автор, ответственный за переписку:

Писклаков Андрей Валерьевич, д.м.н., профессор, заведующий кафедрой детской хирургии, репродуктивной медицины детского возраста ФГБОУ ВО ОмГМУ

Минздрава России

644099, г. Омск, ул. Куйбышева, 77, omskdetchir@mail.ru

Резюме

Врожденная кистозно-аденоматозная мальформация легкого является редкой врожденной патологией, характеризующейся образованием разных по диаметру кист, которая в неонатальном периоде манифестирует как респираторный дистресс-синдром, в старшем возрасте – как хронические воспалительные заболевания легких. Кистозно-аденоматозная мальформация легкого имеет несколько вариантов исходов, в том числе малигнизацию и регрессию, может сочетаться с другими аномалиями. В данной работе рассматривается эмбриогенез легкого, гистопатологическая классификация, антенатальная и постнатальная диагностика порока.

Ключевые слова: кистозно-аденоматозный, порок развития, антенатальная диагностика, постнатальная диагностика, эмбриогенез.

Первое упоминание этой врожденной патологии относится к 1638 году, когда Н. Fontanus описал напряженную воздушную кисту у ребенка, приведшую к летальному исходу. В конце 1890-х годов еще один случай врожденной кистозно-аденоматозной мальформации легкого у умершего новорожденного был назван кистозной болезнью. Впервые данный порок был описан как кистозная-аденоматоидная мальформация легких у детей в 1949 году К. Chin и М. Tang. Микроскопические характеристики порока были зафиксированы в 1977 году Kwittken Reiner.

Дефект в 90% случаев односторонний, в 10 % - двусторонний вовлекает в основном одну долю, реже является мультилобарным, что описывают в своем исследовании И.В. Новикова, Н.А. Венчикова, И.В. Соловьева, С.И. Ковалев, О.А. Тарлецкая, Э.И. Мараховская [5]. Частота данного порока колеблется от 1 на 25000 до 1 на 35000 живых новорожденных, большинство случаев выявляется у мальчиков. При некоторых типах могут обнаруживаться другие дефекты развития легких, а также почечные и сердечные мальформации.

D. Desseauve, M. Dugué-Marechaud, S. Maurin, M-È. Gatibelza, V. Vequeau-Goua, M. Mergy-Laurent, G. Levard, F. Pierre [28] обращают в своей работе внимание на способность к самопроизвольному разрешению микрокистозных типов данной аномалии. Однако постнатальная регрессия поражений маловероятна. Макрокистозный тип кистозно-аденоматозной мальформации легкого, напротив, не имеет тенденции к регрессу, крупные заполненные жидкостью кисты могут сдавливать здоровую паренхиму легкого, вызывая ее гипоплазию, сдвиг средостения и сдавление нижней полой вены, способствуя развитию сердечно-сосудистой недостаточности и генерализованной водянки плода, что связано с риском его гибели. Эти проблемы являются важными для ведения беременности и прогноза течения заболевания.

В постнатальном периоде кистозно-аденоматозный порок развития сопряжен с риском развития респираторного дистресс-синдрома у новорожденных, а также рецидивирующих воспалительных заболеваний легких в более старшем возрасте, о чем упоминают К. М. Alshamiri, Н. В. Abbod [8] и Peng An, Yu Wang, Wei Feng, Jia-Qi Zhang, Yu-Xin Ning, Jia-Bao Yin, Heng-Bo Ye, Juan Song, Xiao-Ni Chen, Jin-Zhi Xu, Qiao-Yue He, He Zeng, Yang Li, Wei Yuan, Zi-Zhou He [18].

Для большей точности диагностики и терапии необходимо знать эмбриогенез легкого, время развития данной патологии, ее признаки, отмечающиеся при использовании различных методов в зависимости от типа порока. На данный момент малое количество отечественных источников содержат информацию о двух новых типах кистозно-аденоматозной мальформации, подробном эмбриогенезе легкого, антенатальной регрессии аномалии. Эти данные важны для диагностики, прогнозирования и лечения, поэтому требуют более глубокого изучения.

Эмбриогенез легкого

Патогенез кистозно-аденоматозной мальформации легкого связан с эмбриогенезом органа. Этот процесс подробно описывается в работах D. A. Kaminsky [24]; N. Sahasrabudhe, J. R. Gosney, P. Hasleton [31]; T. Berrocal, C. Madrid, S. Novo, J. Gutiérrez, A. Arjonilla, N. Gómez-León [12].

Дыхательная система начинает развиваться с 3-4 недели беременности из передней кишки. В ее образовании участвуют: энтодерма, из которой происходит эпителий трахеи, бронхов и альвеол, и мезодерма, дающая начало мышцам, хрящам и соединительной ткани.

Развитие легкого можно разделить на пять фаз: эмбриональную, псевдоглангулярную, каналикулярную, саккулярную и альвеолярную.

Эмбриональный период, в течение которого закладывается респираторный ди-вертикул, длится около 7 недель. Первым

признаком начала процесса формирования дыхательных путей является ларинготрахеальный гребень, также называемый респираторным дивертикулом, на передней стенке пищеварительной трубки, образование располагается каудальнее глоточных карманов. Затем из него формируется трахея.

На ее конце на 4-ой неделе образуются два мешковидных выпячивания (почки), которые в дальнейшем дадут начало правым и левым главным бронхам. К 32-35-м суткам определяются долевые бронхи, через 10 дней – сегментарные и субсегментарные бронхиальные почки.

Между образованными нижними дыхательными путями вырастает мезенхима, происходит образование капиллярной сети. Дальнейшее дихотомическое деление продолжается, таким образом, на 14-ой неделе развития формируется около 70 % от общего объема дыхательных путей.

События псевдоглангулярной фазы происходят между 7-й и 17-й неделями гестации. Завершается процесс образования бронхиального дерева, образуются терминальные бронхиолы, при этом дистальные части бронхиального дерева не имеют или имеют малый по диаметру просвет. Происходит дифференцировка эпителиальных клеток, возникают легочные артерии и вены. Из мезенхимы образуется хрящ, подслизистые железы, гладкая мускулатура бронхов. На данном этапе легкое напоминает железу.

Следующая фаза – каналикулярная. Она длится с 17-ой по 27-ю неделю внутриутробного развития плода. С 24-ой недели в дистальных частях бронхиального дерева полностью открывается просвет, происходит образование респираторных бронхиол, альвеолярных ходов, примитивных альвеол, дифференцировка пневмоцитов I и II типов. Также образуется аэрогематический барьер.

С 22-ой недели начинается саккулярная фаза, которая заканчивается на 36-ой неделе, к этому моменту уже определяются альвеолы. Продолжается дальнейшая

дифференцировка пневмоцитов I и II типов.

Во время альвеолярной стадии, которая длится от 36-й недели внутриутробного развития до двух лет, происходит увеличение количества альвеол образование перегородок между ними (септация), расширяются и укрепляются бронхиолы и альвеолы.

Развитие кистозно-аденоматозной мальформации легкого по мнению F.A. Francesca Di Prima, A. Bellia, G. Inclimona, F. Grasso, M. Teresa, M.N. Cassaro [10] связано с псевдоглангулярной стадией, когда происходит быстрое расширение дыхательных путей и периферических ответвлений бронхиального дерева, продолжающих ветвиться с образованием ацинарных каналов. Остановка в этой фазе эмбриогенеза легких вовлекает бронхиальный тип эпителия, вызывая I-III типы кистозно-аденоматозной мальформации легких, а если произошло более позднее нарушение развития органа (23-36-я неделя), отмечается альвеолярно-ацинарная патология эпителия – тип IV.

Механизм развития данной патологии до сих пор до конца не изучен. На сегодняшний день научным сообществом обсуждается три варианта патогенеза порока. A.G. Ostor and D. W. Fortune [25] предположили, что нарушение происходит в каналикулярную фазу, так как при исследовании, на периферии очага, в центре которого наблюдался аномальный рост структур легочной ткани, располагались нормальные альвеолы, что возможно в следствие несостоятельности канализации терминальных бронхиол, отсутствия соединения между проводящими и дыхательными элементами паренхимы органа, и автономного развития этих элементов в онтогенезе.

По мнению P. Moreman, J.P. Fryns, K. Vandenberghe, H. Devlieger, J.M. Lauweryns [27], первичным дефектом, приводящим к развитию кистозно-аденоматозного порока развития легких, является атрезия бронхов. Тип мальформации в этом случае определяется степенью

диспластического роста легкого за пределами атретического сегмента.

Также J. Cangiarella, M.A. Greco, F. Askin, E. Perlman, S. Goswami, J. Jagirdar [16] считают, что данная патология может возникать из-за аномального взаимодействия между мезенхимой и эпителием во время развития легкого и отсутствия созревания его ткани.

Классификация

В 1977 году американский патоморфолог J.T. Stocker и его соавторы [15] описали три гистопатологических типа кистозно-аденоматозных пороков развития легкого. В 2002 году в список были добавлены еще два типа (0 и 4). Данная система классификации используется и в настоящее время. Признаки каждого типа представлены в работе B. Strumillo, A. Jóźwiak, A. Pałka, K. Szaflik, A. Piaseczna-Piotrowska [14], а также в статье A.K. Sfakianaki, J.A. Copel [32].

Тип 0 – ацинарная дисплазия – является самой редкой формой. Мелкие кисты до 5 мм в диаметре, возникающие из трахеи или бронха, выстланы высоким цилиндрическим эпителием, в фиброзно-мышечной стенке определяется хрящ и железы. Как правило, является летальным. Тип I является наиболее распространенной формой (от 50 % до 70 % случаев). Кисты возникают из дистального бронха или проксимальной бронхиолы. Обычно их немного, размер колеблется от 3 до 10 см. Также возможно наличие доминирующей кисты. Стенки более крупных образований выстланы мерцательным псевдомногорядным цилиндрическим эпителием, более мелких – кубическим или цилиндрическим эпителием. В структуре стенки кист могут быть гладкомышечные клетки, эластические и коллагеновые волокна, хрящ. При данной форме возможно смещение средостения в здоровую сторону.

Тип II – промежуточный – составляет от 15 % до 30 % случаев. Возникает из терминальных бронхиол. Обнаруживаются мелкие кисты размером от 0,5 до 2 см, равномерно распределенных среди легочной ткани. Изнутри кисты выстланы

реснитчатым кубовидным или цилиндрическим эпителием, могут визуализироваться элементы бронхиол или альвеол. Часто кисты расположены более равномерно, чем при кистозно-аденоматозной мальформации легких I типа. Данный тип, по мнению С.В. Идимешевой, Е.Г. Баженовой, Ю.Ю. Коротковой, Е.М. Козыренко, Е.Г. Трифоновой, В.А. Ведерникова и Т.Ю. Кан [2], имеет самую высокую частоту ассоциированных аномалий (до 60 %), от которых зависит прогноз заболевания. Также в статье A. Garzi, U. Ferrentino, G. Ardimento, S. Brongo, M.S. Rubino, E. Calabrò, E. Clemente, R.M. Di Crescenzo [17] приводится три клинических случая, которые подтверждают сказанное выше. Для этого типа характерны пороки развития почек и сердца, дефекты брюшной стенки, аномалии центральной нервной системы и половых путей, деформации позвоночника.

Тип III – солидные – составляет от 5 % до 10 % случаев и, предположительно, возникает из ацинарной ткани. Поражения легких при данном типе представляют собой большие плотные опухолевидные массы, которые являются скоплениями кист диаметром менее 2 мм, занимают долю или все легкое. Эти массы могут быть достаточно объемными и смещать органы средостения. Микроскопически пораженная ткань напоминает незрелое легкое, лишенное бронхов. Бронхиолоподобные структуры выстланы кубическим эпителием, вокруг располагаются альвеолярные ходы и альвеолы, также выстланные кубическим эпителием.

Тип IV составляет от 5 % до 15 % случаев. Отмечаются большие тонкостенные кисты размером до 10 см, имеющие альвеолярное происхождение. Стенки, состоящие из плотной мезенхимальной ткани, выстланы уплощенным альвеолярным эпителием. Слизистые клетки, хрящ, мышечные клетки не определяются. Данный тип склонен к малигнизации (плевропульмональная бластома), о чем рассказывается в статье S. Knight, T. Knight, A. Khan, A.J. Murphy [21], C. Leblanc, M. Baron, E. Desselas, M.H. Phan,

A. Rybak, G. Thouvenin, C. Lauby, S. Irtan [20].

Аntenатальная и постнатальная диагностика.

Наиболее информативными диагностическими исследованиями являются инструментальные. В антенатальном периоде основным методом является ультразвуковое исследование, позволяющее заподозрить у плода пороки развития, являющееся безопасным и широкодоступным. М.И. Пыков, Е.И. Дорофеева, А.К. Миронова, Е.А. Филиппова [7]; M. Gallardo, M.A. de la Rosa, J.F. De Luis, L. Mendoza, A. I. Padilla, J. Troyano [11] и Я.Л. Манаква, Н.С. Ненарочнова, А.П. Дергилев, Ю.С. Пинегина, А.М. Коростышевская [3] отмечают высокую эффективность данной методики. Кистозно-аденоматозную мальформацию легкого можно обнаружить с 20-й недели беременности, во время проведения рутинного исследования.

Характерные признаки на УЗИ: множественные кисты различных, в зависимости от типа, размеров с гиперэхогенной стенкой. Отмечается увеличение линейных и объемных размеров легких со смещением органов средостения при больших размерах поражения.

При 0 типе визуализируются кисты малого диаметра, происходящие из трахеи или бронха, при I типе – одна или несколько кист от 2 до 10 сантиметров в диаметре, есть доминирующая киста, при II типе – множественные кисты от 0,5 до 2 см в диаметре, сопутствующие аномалии, при III типе – кисты очень малого размера, видимые как гиперэхогенная масса, при IV типе – большие кисты до 10 см в диаметре, что отмечают в своей работе M.S. Gautam, S.M. Naren Satya, I.S. Prathyusha, K.H.C. Reddy, K.R. Mayilvaganan, D. Raidu [9].

Опираясь на вышеизложенное, можно сделать вывод, что I, II, IV типы относят к макрокистозным поражениям, а III тип – к микрокистозным. Такую классификацию приводят в своей статье А.С. Панченко, С.Г. Гаймоленко, М.С. Панова, Р.А. Сущенко, Т.М. Ерохина [6]. В доступных

источниках тип 0 не причислен к одному из двух видов поражений легкого. Полагаем, что его параметры соответствуют микрокистозной форме аномалии.

В нескольких работах, как из исходов кистозно-аденоматозного порока развития типа III, отмечается его регрессия. Так, в статье М.В. Медведева, О.С. Романенковой и Т.И. Титовой [4] упоминается несколько случаев, характеризующихся сохранением обнаруженных изменений паренхимы легкого до родов, а затем исчезающих или носящих переходящий характер в пренатальном периоде, также это отмечают S. Hourrier, L-J. Salomon, J-P. Bault, Y. Dumez, Y. Ville [30]; J. S. Lima, P.A.M. Camargos, R.A.L.P. Aguiar, A.S. Campos, M.J.B. Aguiar [29]; M.S. Beksac, E. Fadiloglu, A. Tanacan, C. Unal, N.B. Tepe, E. Aydin, G. Orgul, M. Yurdakok [26], A. Hadchouel, A. Benachi, Y. Revillon, V. Rousseau, J. Martinovic, V. Verkarre, Y. Dumez, C. Delacourt [22] и ряд других авторов [6]. Несмотря на то, что тип 0 также относится к микрокистозной форме аномалии, в источниках нет информации о его возможной регрессии. Возможно, это связано с грубым нарушением развития дыхательных путей.

Эти данные указывают на то, что ультразвуковой диагноз «кистозно-аденоматозный порок развития легких» является предварительным из-за возможного исчезновения признаков порока у части пациентов в ходе течения заболевания. Поэтому в этом случае прерывание беременности по результатам пренатального УЗИ не является обоснованным.

М.В. Медведев, О.С. Романенкова, Т.И. Титова [4], а также А.С. Панченко, С.Г. Гаймоленко, М.С. Панова, Р.А. Сущенко, Т.М. Ерохина [6] описывают возможность развития экстралегочного проявления – многоводия, возникающего из-за сдавления пищевода и нарушения глотания амниотической жидкости плодом или из-за повышенной продукции жидкости аномальными клетками в зоне поражения бронхиального дерева. Также отмечают возникновение неиммунной

водянки плода, причина которой заключается в развитии застойной сердечно-сосудистой недостаточности из-за сдавления аномальной тканью легкого сердца, центральных вен. Эти признаки также визуализируются с помощью УЗИ. Цветное доплеровское картирование позволяет обнаружить еще один признак кистозно-аденоматозного порока развития, важный в дифференциальной диагностике пороков развития легких – отсутствие системного кровообращения в пораженном участке. При его наличии визуализируется крупный сосуд, отходящий от аорты и питающий гиперэхогенное легочное образование. Данные признаки могут свидетельствовать о наличии легочной секвестрации. Необходимо учитывать, что указанные пороки могут сочетаться.

Для инструментальной диагностики кистозно-аденоматозной мальформации легкого в постнатальном периоде одним из используемых методов является рентгенологический. На рентгенограммах наблюдается неравномерное повышение прозрачности части легочной ткани, одиночные или множественные кистозные образования различных размеров, содержащие воздух или жидкость, на фоне увеличения легочной доли. Возможна визуализация смещенных органов средостения в здоровую сторону, низкого стояние купола диафрагмы на стороне поражения. С помощью контрастирования возможно исключить наличие кровоснабжения патологического участка из аорты.

Более точно дифференцировать кистозно-аденоматозный порок развития легких от других аномалий (секвестрация, лобарная эмфизема, врожденные кисты легких) позволяют КТ и МСКТ, что отмечают в своей статье Ю.В. Баженова, Н.С. Дрантусова, П.А. Краснов, Б.И. Подашев [1] и Zeng-Jun Zhang, Ming-Xia Huang [33]. На снимках при отсутствии инфицирования выявляют кистозные тонкостенные полости, при присоединении воспалительной инфекции – сложные по форме кистозные полости с толстыми стенками, заполненные воздухом

и жидкостью. Окружающая паренхима уплотнена (по типу «матового стекла» или, при более плотных участках, по типу «консолидации»). Также различимо отсутствие системного кровообращения в пораженном участке.

Для диагностики кистозно-аденоматозной мальформации легких также используют МРТ – как в антенатальном, так и в постнатальном периодах. Макрокисты имеют повышенную интенсивность сигнала, микрокисты – промежуточную. Но на поздних сроках гестации диагностика порока затрудняется, так как повышается интенсивность магнитно-резонансного сигнала легочной ткани. МРТ является наиболее достоверным методом, если необходимо дифференцировать данную патологию от диафрагмальной грыжи, о чем в своей работе сообщают J. Martinez, A. Miranda-Paanakker, P. Gomez-Leal, P. Navarro-Sanchez, A. Bueno-Crespo, J.P. Martinez-Cendan, M. Remezsal-Solano [23]. V.S. Raman, S. Agarwala, V. Bhatnagar, S.S. Panda, A.K. Gupta [19], а также W. El Amraoui, A. Bentalha, H. Hamri, S. Es-Chrif El Kettani, A. El Koraichi [13] обращают внимание на то, что МРТ позволяет исключить наличие системного кровообращения.

Обобщая вышеизложенное отмечаем, что кистозно-аденоматозный порок развития легкого является врожденным и недостаточно изученным заболеванием, но при общей направленности работ на изучение развития плода и порока, методов и принципов диагностики, исследователи уделяют недостаточное внимание анамнезу родителей ребенка. О матерях известен только возраст, отсутствует информация о перенесенных заболеваниях, образе жизни, средовых факторах. Нет информации об отцах. Нет данных о тенденциях роста заболевания в заданном периоде, распространенности на определенных территориях. Отсутствие этой информации затрудняет установления этиологии заболевания и препятствует своевременной профилактике.

Также необходимо отметить несвоевременную актуализацию стандартов диагностирования типов патологии в Российской Федерации. Между тем, в ряде случаев отмечается бессимптомное течение заболевания и обнаружение пороков в более позднем возрасте, что значительно искажает статистику по данному пороку.

В сложившейся ситуации очень важно уделять внимание динамическому наблюдению за развитием плода на протяжении всех этапов беременности, по

дробно изучать эмбриогенез легкого, чтобы установить причину возникновения мальформации, проводить профилактические мероприятия, направленные на снижение риска ее возникновения и повышения качества медицинской помощи пациентам. Особенно следует обратить внимание и глубоко изучать случаи, исходом которых стал регресс кистозных образований, выявлять причины этого процесса, чтобы исключить необоснованное прерывание беременности.

ЛИТЕРАТУРА

1. Баженова Ю.В. и соавт. Компьютерная томография в диагностике кистозных аденоматоидных мальформаций легких у новорожденных. Сибирский медицинский журнал (Иркутск) 2015; 2: 132-135.
2. Идимешева С.В. и соавт. Случай кистозно-аденоматозного порока развития легкого плода, ассоциированный с неблагоприятным исходом. Пренатальная диагностика 2017; 1: 83-87.
3. Манакова Я.Л. и соавт. Случай из практики: врожденная кистозная мальформация легкого. REJR 2017; 4: 194-201.
4. Медведев М.В. и соавт. Другой взгляд на пренатальную диагностику врожденного кистозно-аденоматозного порока развития легких. Пренатальная диагностика 2016; 1: 58-63.
5. Новикова И.В. и соавт. Кистозно-аденоматозный порок развития легких у плодов: анализ 65 случаев. Современные перинатальные медицинские технологии в решении проблем демографической безопасности. Минск: 2017. с. 291-293.
6. Панченко А.С. и соавт. Кистозно-аденоматозная мальформация легких у детей Забайкальский медицинский журнал. 2016;4:46-50.
7. Пыков М. И. Ранняя диагностика кистозных аденоматоидных мальформаций легких у новорожденных детей с использованием ультразвукового метода исследования. Российский вестник перинатологии и педиатрии 2013; 1: 18-23.
8. Alshamiri K. M. Congenital cystic adenomatoid malformation Int J Pediatr Adolesc Med. 2017; 4(4): 159-160.
9. An Atypical Presentation of Congenital Pulmonary Airway Malformation (CPAM): A Rare Case with Antenatal Ultrasound Findings and Review of Literature Pol J Radiol 2017; 82: 299-303.
10. Antenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid malformations (CCAM): Research Review J Prenat Med. 2012; 6: 22-30
11. Antenatal ultrasound diagnosis and neonatal results of the congenital cystic adenomatoid malformation of the lung Rev Chil Pediatr. 2018; 89(2): 224-230.
12. Congenital Anomalies of the Tracheobronchial Tree, Lung, and Mediastinum: Embryology, Radiology and Pathology RadioGraphics 2004; 24
13. Congenital cystic adenomatoid malformation – dangers of misdiagnosis: a case report / W. El Amraoui, A. Bentalha, H. Hamri, S. Es-Chrif El Kettani, A. El Koraichi // J Med Case Rep. 2017; 3(11): 212.
14. Congenital cystic adenomatoid malformation - diagnostic and therapeutic procedure: 8-year experience of one medical centre / B. Strumillo, A. Jóźwiak, A. Palka, K. Szaflik, A. Piaseczna-Piotrowska // Kardiochir Torakochirurgia Pol.2018; 15: 10-17.
15. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. Classification and morphologic spectrum. Hum Pathol. 1977; 2: 155-171.
16. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung: insights into the pathogenesis utilizing quantitative analysis of vascular marker CD34 (QBEND-10) and cell proliferation marker MIB-1 / J. Cangiarella, M. A. Greco, F. Askin, E. Perlman, S. Goswami, J. Jagirdar // Mod Pathol. 1995; 8: 913-918.
17. Congenital Cystic Adenomatoid Malformation of the Lung Type II: Three Cases Report / A. Garzi, U. Ferrentino, G. Ardimento, S. Brongo, M. S. Rubino, E. Calabrò, E. Clemente, R. M. Di Crescenzo // Transl Med UniSa. 2019; 20: 4-8.
18. Congenital Cystic Adenomatoid Malformation Volume Ratio in Prenatal Assessment of Prognosis of Fetal Pulmonary Sequestrations / Peng An, Yu Wang, Wei Feng, Jia-Qi Zhang, Yu-Xin Ning, Jia-Bao Yin, Heng-Bo Ye, Juan Song, Xiao-Ni Chen, Jin-Zhi Xu, Qiao-Yue He, He Zeng, Yang Li, Wei Yuan, Zi-Zhou He // Current Medical Science 2019; 39: 658-662.

19. Congenital cystic lesions of the lungs: The perils of misdiagnosis - A single-center experience / V. S. Raman, S. Agarwala, V. Bhatnagar, S. S. Panda, A. K. Gupta // *Lung India* 2015; 2: 116–118.
20. Congenital pulmonary airway malformations: state-of-the-art review for pediatrician's use / C. Leblanc, M. Baron, E. Desselas, M. H. Phan, A. Rybak, G. Thouvenin, C. Lauby, S. Irtan // *European Journal of Pediatrics* 2017; 186: 1559–1571.
21. Current Management of Pleuropulmonary Blastoma: A Surgical Perspective / S. Knight, T. Knight, A. Khan, A. J. Murphy // *Children (Basel)* 2019; 6(8): 86.
22. Factors associated with partial and complete regression of fetal lung lesions *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2011; 38: 88-93.
23. Fetal MRI as Complementary Study of Congenital Cystic Adenomatoid Malformation During Pregnancy: A Single Case Report *Cureus.* 2016; 8:4.
24. Kaminsky D. A. The Netter Collection of medical illustrations: Respiratory System / D. A. Kaminsky. Elsevier Inc., 2011; p. 345.
25. Ostor A. G. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung / A. G. Ostor, D. W. Fortune // *Am J Clin Pathol.* 1978; 70: 595-604.
26. Outcomes of Cases of Prenatally-Diagnosed Congenital Pulmonary Airway Malformation / M. S. Beksac, E. Fadiloglu, A. Tanacan, C. Unal, N. B. Tepe, E. Aydın, G. Orgul, M. Yurdakok // *Rev Bras Ginecol Obstet.* 2019; 41: 654-659.
27. Pathogenesis of CCAM of the lung. *Histopathology* 1992; 4: 315-321.
28. Performance of prenatal diagnosis and post-natal development of congenital lung malformations / D. Desseauve, M. Dugué-Marechaud, S. Maurin, M-È. Gatibelza, V. Vequeau-Goua, M. Mergy-Laurent, G. Levard, F. Pierre // *Gynecol Obstet Fertil.* 2015; 9: 278-283.
29. Pre- and perinatal aspects of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung // *J Matern Fetal Neonatal Med.* 2014; 27: 228-232.
30. Prenatal diagnosis and management of foetal lung lesions *Rev Mal Respir.* 2011; 28: 1017-1024.
31. Sahasrabudhe N. *Spencer's Pathology of the Lung* / N. Sahasrabudhe, J. R. Gosney, P. Hasleton. Cambridge University Press; 2013.
32. Sfakianaki A. K. Congenital Cystic Lesions of the Lung: Congenital Cystic Adenomatoid Malformation and Bronchopulmonary Sequestration *Rev Obstet Gynecol.* 2012; 5: 85–93.
33. Zeng-Jun Zhang. Children with congenital cystic adenomatoid malformation of the lung CT diagnosis *Int J Clin Exp Med.* 2015; 8(3): 4415–4419.