

Olga MILCZAREK
Monika BRAUCHROWICZ
Stanisław KWIATKOWSKI
Agata HAŁABUDA
Anna STAROWICZ - FILIP
Dariusz ADAMEK

Oddział Neurochirurgii, Uniwersytecki Szpital
Dziecięcy w Krakowie.
ul. Wielicka 265, 30-663 Kraków
tel. +48 12 658 20 11 wew. 1528
Kierownik Oddziału:
dr hab. med. Stanisław Kwiatkowski

Słowa kluczowe:
cerebral hemorrhage, dziecięcy tętniak mózgowy,
diagnostyka angio-CT, tętniak mykotyczny

Key words:
cerebral hemorrhage, pediatric aneurysm,
intracranial aneurysm, mycotic aneurysm,
angio-CT

Adres do korespondencji:
Dr hab. med. Stanisław Kwiatkowski
Uniwersytecki Szpital Dziecięcy w Krakowie,
ul. Wielicka 265
30-663 Kraków
Tel. +48 12 658 20 11 wew. 1528

Rzadki przypadek pękniętego tętniaka mykotycznego u dziecka – postępowanie w przypadku podejrzenia krwawienia śródczaszkowego z pękniętej malformacji naczyniowej.

Rare case of children ruptured mycotic aneurysm – evaluation of treatment in intracranial hemorrhage followed by ruptured aneurysm.

Tętniak mykotyczny – (MIA – Mycotic Intracranial Aneurysm – mykotyczny tętniak śródczaszkowy) jest bardzo rzadką patologią śródczaszkową stanowiącą 1 – 6% przypadków wszystkich tętniaków naczyń mózgowych. MIA związany jest z wysokim ryzykiem pęknięcia, śmiertelność sięga nawet 40%. Praca przedstawia opis przypadku pęknięcia tętniaka mykotycznego u dziecka w okolicznościach podejrzenia krwawienia śródczaszkowego pourazowego.

Niecharakterystyczny dla urazu obraz krwiaka w badaniu TK oraz brak jednoznacznego potwierdzenia mechanizmu urazowego, skłonił do wykonania angio-TK, co pozwoliło na ustalenie właściwego rozpoznania, potwierdzonego późniejszym badaniem histopatologicznym. Autorzy zwracają uwagę na konieczność uwzględnienia w ostrożykowej diagnostyce różnicowej u nieprzytomnego dziecka krwawienia z pękniętej malformacji naczyniowej mózgu i wykonywania w takim wypadku badania tomograficznego w wersji angio.

Wstęp

Tętniaki naczyń mózgowych w swym klasycznym przebiegu nie dają objawów do momentu osiągnięcia dużych rozmiarów lub do czasu ich pęknięcia. W przypadku pęknięcia tętniaka powstałego na drodze osłabienia ściany naczyniowej wskutek arteriosklerozy objawy okazują się być bardzo charakterystyczne i łatwe do odróżnienia od pękniętego tętniaka mykotycznego [1]. Tętniak mykotyczny – (MIA – Mycotic Intracranial Aneurysm – mykotyczny tętniak śródczaszkowy) jest bardzo rzadką patologią śródczaszkową stanowiącą 1 – 6% przypadków wszystkich tętniaków naczyń mózgowych [2]. MIA związany jest z wysokim ryzykiem pęknięcia, czemu towarzyszą ostre objawy pod postacią gorączki czy zaburzeń świadomości prowadząc ostatecznie nawet do zgonu. Śmiertelność w przypadku pęknięcia tętniaka mykotycznego sięga nawet 40% [1].

Patofizjologia i mechanizm powstania

Tętniak mykotyczny nazywany jest też tętniakiem „infekcyjnym”. Ściana takiego tętniaka składa się z materiału

Mycotic Intracranial Aneurysm (MIA) is a very rare intracranial pathology, which makes about 1-6% of all cerebrovascular aneurysms. MIA is connected with a high risk of hemorrhage, mortality rate ranges to 40%. The article presents the case of the mycotic intracranial aneurysm rupture in the child who was primary diagnosed towards the post traumatic intracranial hemorrhage. Atypical picture of the post traumatic hemorrhage in CT as well as the lack of unambiguous confirmation of traumatic mechanism made the researchers to do the CT angiography. Both the CT angiography result and histopathological examination confirm the diagnosis of MIA. According to emergency diagnosis of unconscious child, authors of the article emphasise the necessity of considering the aneurysm rupture and in this case doing the CT angiography.

zapalnego, materiału krwotocznego oraz ścięczyłych, nacieczonych tkanek miękkich okołonaczyniowych. Przyczyną obserwowanej patologii naczyniowej jest szybki przyrost tętniaka, trwający zaledwie kilka dni [1,3]. Tętniaki zapalne powstają na drodze rozsiewu zapalenia z lokalizacji odległych. Najczęściej są to zapalenia wsierdza, ropnie i ropniaki również w obrębie jamy brzusznej, zapalenie rdzenia i szpiku kostnego [3,4]. Mikroorganizmy prowadzące do rozwoju tętniaka infekcyjnego poprzez rozsiew drogą naczyniową to: Staphylococcus, Streptococcus, Salmonella, Escherichia coli, Pseudomonas, Listeria monocytogenes and Haemophilus influenzae [1]. Leczenie tętniaka mykotycznego niepękniętego polega na stosowaniu antybiotykoterapii celowanej i zamknięciu tętniaka przy wykorzystaniu metod mikrochirurgicznych lub endowaskularnych [2]. Postępowanie w przypadku pęknięcia tętniaka niezależnie od jego etiologii stanowi wyzwanie dla lekarza zarówno w aspekcie leczenia neurochirurgicznego jak i intensywnej terapii.

Opis przypadku

Czternastoletnia dziewczynka, dotychczas poważnie niechorująca została skierowana do Uniwersyteckiego Szpitala Dziecięcego (USD) w Krakowie z SOR przy szpitalu rejonowym z rozpoznaniem w badaniu CT (CT – computed tomography – tomografia komputerowa) głowy krwiakiem śródmózgowym wielkości 47-mm w lewym płacie czołowym oraz z obecnym wylewem krwawym w układzie komorowym. Na kilka godzin przed przyjęciem do USD dziecko znalezione nieprzytomne na podłodze w toalecie szkolnej. Brak świadków nie pozwalał na jednoznaczne stwierdzenie, czy do utraty przytomności doszło na skutek urazu głowy, czy w mechanizmie pierwotnym.

Przy przyjęciu do szpitala pacjentka była nieprzytomna, zaintubowana, mechanicznie wentylowana, ze słabą reakcją bólową, w skali GCS została oceniona na 8 pkt. Źrenice początkowo szpilkowate, równe, bez reakcji na światło, następnie obserwowano anizocorię.

Po wykonaniu tomografii komputerowej głowy (CT), wykazującej obecność rozległego krwawienia śródczaszkowego bez zmian pourazowych w kościach pokrywy czaszki i tkankach miękkich oraz brak cech krwawienia podpajęczynówkowego w miejscu domniemanego urazu (ryc.1), dziecko skierowano do badania angio-TK z podejrzeniem krwawienia z malformacji naczyniowej (ryc.2 i ryc.3).

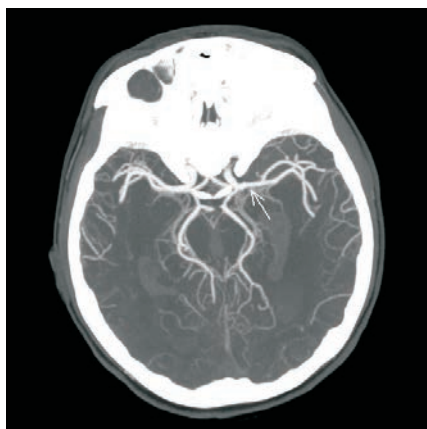
Po potwierdzeniu rozpoznania, dziewczynkę w trybie pilnym zakwalifikowano do leczenia neurochirurgicznego. Śródoperacyjnie w płacie czołowym po stronie lewej stwierdzono częściowo wykrzepiony, a częściowo świeży krwiak z patologicznym układem naczyń budzącym podejrzenie malformacji tętniczo – żylny. Krwiak usunięto, oczyszczono układ komorowy ze skrzepów krwi. W lewej komorze ulokowano dren do utrzymania drenażu zewnętrznego.

Część usuniętego skrzepu zawierająca patologiczne naczynia posłano do badania histopatologicznego. W badaniu tym zidentyfikowano struktury odpowiadające nieprawidłowej ścianie poszerzonego naczynia krwionośnego oraz zmiany zapalne z tworzeniem nieswoistej ziarniny. Całość obrazu przemawiała za *mycotic aneurysm*, do różnicowania z przewlekłym krwiakiem podtwardówkowym, który wykluczono na podstawie zebranego wywiadu klinicznego.

W pierwszej dobie po zabiegu kontrolna tomografia komputerowa głowy (CT) nie wykazała krwiaka śródmózgowego, obecne były cechy obrzęku obu półkul mózgu, szczególnie w okolicach czołowo-ciemieniowo-skroniowych lewej półkuli mózgu na poziomie zabiegu i poniżej, bez przemieszczenia linii środkowej (ryc.4). Układ komorowy nadnamiotowy był



Rycina 1.
CT głowy bez dożylnego wzmocnienia kontrastem, przekrój poprzeczny: ostry krwiak śródmózgowy w płacie czołowym lewym z przebiegiem do światła komór i ich wtórnym umiarkowanym poszerzeniem; wokół krwiaka widoczna strefa obrzęku (brak cech krwawienia podpajęczynówkowego oraz kształt krwiaka budzą wątpliwości co do etiologii urazowej)



Rycina 2.
Angio-CT głowy, MIP, przekrój poprzeczny: stan po krwawieniu śródmózgowym; zwężenie światła tętnicy mózgu środkowej lewej (strzałka) bez dobrze widocznych granic tętniaka, które uwidoczniłoby dopiero w rekonstrukcji 3D



Rycina 3.
Angio CT głowy, rekonstrukcja 3D, widok od góry: tętniak wrzecionowaty tętnicy mózgu środkowej lewej (wskazany strzałką) długości 10mm, przebiegający od miejsca odejścia t. mózgu przedniej do miejsca podziału tętnicy mózgu środkowej

zwężony z asymetrią komór bocznych, z zaciśnięciem światła lewej komory bocznej. Wykazano obecność krwi w świetle komór bocznych, komory III i nieposzerzonej komory IV, oraz niewielką ilość krwi w przestrzeni podpajęczynówkowej w tylnej jamie czaszki wzdłuż zatok opony twardej i namiotu mózdzku.

Przez pierwsze trzy doby pooperacyjne stan dziecka był ciężki. Pacjentka wymagała mechanicznej wentylacji, początkowo nie wykazując reakcji na bodźce z otoczenia. Z komory drenowała się treść krwista w stopniowo zmniejszającej się objętości.

Dziewczynka wymagała przeciwo-brzękowego leczenia farmakologicznego. Włączono też leki prokognitywne. Od drugiej doby pooperacyjnej obserwowano reakcję bólową, w trzeciej reakcję na głos. W czwartej dobie pooperacyjnej pacjentce usunięto rurkę intubacyjną, w piątej dobie dziewczynka samoczynnie wyrwała drenaż zewnętrzny, nie obserwowano jednak pogorszenia stanu ogólnego ani cech narastania ciśnienia śródczaszkowego. W siódmej dobie pooperacyjnej pacjentka opuściła oddział intensywnej terapii (OIT), a w trzynastej dobie została wypisana ze szpitala w dobrym stanie ogólnym, bez objawów nadciśnienia śródczaszkowego.



Rycina 4.
CT głowy bez dożylnego wzmocnienia kontrastem, przekrój poprzeczny: stan po operacyjnym usunięciu krwiaka, zmiany pokrwotoczne w płacie czołowym lewym (śląd krwi, obrzęk, niewielka ilość powietrza), widoczny dren drenażu zewnętrznego.

Tomografię komputerową głowy powtórzono jeszcze w czwartej i ósmej dobie pooperacyjnej. W ostatnim kontrolnym badaniu CT głowy stwierdzono znaczną poprawę, zmniejszyła się ilość krwi w układzie komorowym, oraz nieznacznie zwiększyła się wielkość świeżych ognisk krwotocznych.

W chwili obecnej dziewczynka pozostaje w obserwacji Przeszpitalnej Poradni Neurochirurgicznej.

Omówienie

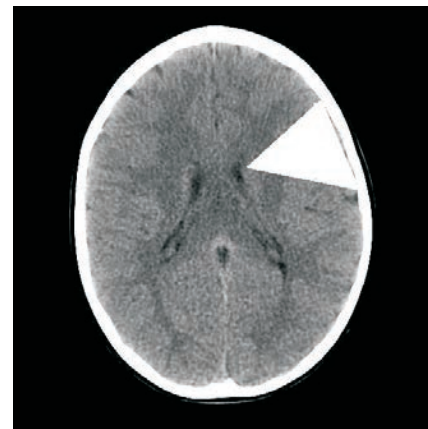
Patofizjologia i morfologia tętniaków występujących w populacji pediatrycznej różni się istotnie od tej spotykanej w grupie pacjentów dorosłych [5]. Leczenie przyczynowe tętniaków występujących u pacjentów dorosłych przesuwa się obecnie wyraźnie w kierunku leczenia endowaskularnego [5,6]. Pęknięcie tętniaka mózgowego jest poważnym stanem zagrożenia życia wymagającym podjęcia natychmiastowego leczenia w wyspecjalizowanym ośrodku. Do oceny stanu neurologicznego pacjenta z pękniętym tętniakiem wykorzystuje się skalę Hunta i Hessa [7]. Skala ta wyszczególnia: stopień nieprzytomności (od splątania, przez stupor do głębokiej śpiączki), ból głowy (słaby, średni, silny), sztywność karku (niewielka, silna), objawy ogniskowe (niewielka, średnia, silna hemipareza). Przy podejrzeniu utraty przytomności związanej z pęknięciem tętniaka konieczne jest pilne wykonanie badania TK głowy. Porównywalne z badaniem TK jest badanie MRI głowy w ostrej fazie krwaka. Złotym standardem jest również wykonanie panangiografii naczyń mózgowych. Ryzyko wystąpienia powikłań dla tej procedury w doświadczonych ośrodkach jest niewielkie, poniżej 0,5% [7,8]. Bezwzględnie konieczne jest monitorowanie nieletniego pacjenta w OIT, które obejmuje ocenę ciśnienia śródczaszkowego (ICP), EKG, GCS (Glasgow Coma Scale), objawów ogniskowych, reakcji źrenic na światło, temperatury. Monitorowanie to powinno być prowadzone regularnie przez 7 dni. Diurezę powinno oceniać się co 6 godzin przez pierwsze 7 dni zakładając cewnik do pęcherza moczowego. Stale monitorować należy ciśnienie tętnicze krwi. Badanie poziomu elektrolitów oraz leukocytozy i poziomu cukru we krwi należy wykonywać przynajmniej jeden raz dziennie [7]. W leczeniu towarzyszącego krwawieniu bólu głowy wykorzystywać powinno się Acetaminofen z podażą co 3-4 godziny, a przy silnych bólach Kodeinę, Tramadol, Piryramid. Salicylany są bezwzględnie przeciwwskazane ze względu na działanie antyhemostatyczne. Leczenie hiperglikemii należy prowadzić przy wartości glukozy powyżej 10 mmol/l. W przypadku pacjentów dorosłych należy pamiętać o prewencji zakrzepicy żył głębokich i zatoru płucnego u pacjentów przebywających długotrwale w ramach oddziału IT. W tym wypadku można zastosować pończochy uciskowe lub pneumatyczny ucisk przerywany u chorych z grup wysokiego ryzyka. U pacjentów z rozpoznaną zakrzepicą żył głębokich podajemy heparyny drobnocząsteczkowe nie wcześniej niż 12 godzin po operacyjnym leczeniu tętniaka lub natychmiast po leczeniu wewnątrznaczyniowym z użyciem materiałów

do wykrzepiania tętniaka. Przed leczeniem operacyjnym należy utrzymywać ciśnienie skurczowe w granicach 90-180 mmHg. Według aktualnych wytycznych ESO (European Stroke Organization) z 2012 r. nie zaleca się stosowania steroidów [7].

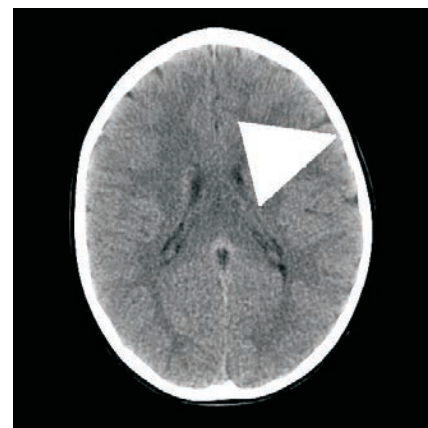
Przed leczeniem chirurgicznym można zastosować leczenie przeciwbólowe, przeciwwymiotne czy też leki przeczyszczające, tak aby unikać sytuacji powodujących wzrost ciśnienia śródczaszkowego. Ryzyko ponownego krwawienia, po leczeniu operacyjnym tętniaka wynosi nawet 15% w ciągu kilku godzin po pierwszym epizodzie. Wśród pacjentów, którzy przeżyją pierwszą dobę po epizodzie krwawienia z tętniaka ryzyko ponownego krwawienia oceniane jest na 35-40% z ryzykiem zgonu 40%; po miesiącu ryzyko to spada do 3% na rok.

Leczenie neurochirurgiczne należy podjąć jak najszybciej, do 24 godzin, a najpóźniej do 72 godzin. Po upływie 72 godzin następuje około dziesięciodniowy okres niekorzystny dla podejmowania interwencji neurochirurgicznej ze względu na obrzęk mózgu i poszerzenie łożyska naczyniowego („red brain syndrom”). Zalecane jest implantowanie drenażu zewnętrznego i utrzymywanie ciśnienia wewnątrzczaszkowego między 10-20 mmHg u pacjentów z potwierdzonym w CT wodogłowiem lub krwawieniem do komór III lub IV. Drenaż łędźwiowy można zastosować wśród pacjentów bez cech krwawienia do komór. Przy objawowym przewlekłym wodogłowiu konieczne jest implantowanie zastawki komorowo – otrzewnowej lub komorowo – przedstonkowej [5]. Powtórna interwencja neurochirurgiczna okazuje się być konieczna u 17,4% po leczeniu endowaskularnym i u 3,8% po neurochirurgicznym wyłączeniu tętniaka z krążenia mózgowego z użyciem zacisku naczyniowego. Prowadząc diagnostykę ostrożyruową, w przypadku uwidocznienia krwaka śródmózgowego w badaniu TK, istotne jest wyjaśnienie jego etiologii, czy jest on samoistny czy pochodzenia urazowego. W różnicowaniu krwaka pourazowego znaczenie ma wywiad – okoliczności i charakter urazu, ewentualne obrażenia zewnętrzne. W samym badaniu TK uwidaczniają się zmiany typowe dla urazu: krwawienie podpajęczynówkowe i ewentualny krwakił przymózgowy w miejscu urazu, drobne, powierzchowne ogniska stłuczenia kory mózgowej, ogniska ukrwotoczonego stłuczenia mózgu, szczelina złamania. Znaczenie ma też położenie krwaka względem sąsiednich struktur. Na załączonych rycinach (ryc. 5a, ryc. 5b) kształt krwaka przyjęliśmy jako zbliżony do trójkąta w celu łatwiejszego zobrazowania zagadnienia. W przypadku krwaków pourazowych – ich szeroka podstawa znajduje się obwodowo, ponieważ źródłem krwawienia są naczynia powierzchowne i naczynia przestrzeni podpajęcznej

przymózgowej (ryc. 5a). W krwawieniu z malformacji naczyniowej – podstawa symbolicznego trójkąta zwrócona jest w kierunku struktur głębokich, ponieważ tu zlokalizowane jest miejsce krwawienia. Obszar krwaka maleje wówczas w kierunku obwodowym (ryc. 5b).



Rycina 5a. Schematycznie zaznaczony obszar krwawienia śródmózgowego o etiologii urazowej.



Rycina 5b. Schematycznie zaznaczony obszar krwawienia z malformacji naczyniowej mózgu.

Podsumowanie

U nieprzytomnego dziecka w diagnostyce różnicowej należy brać pod uwagę pęknięcie tętniaka mózgowego, mimo, iż jest to schorzenie rzadkie w populacji pediatrycznej. Jego przebieg kliniczny jest zwykle cięższy niż u dorosłych. Brak wywiadu urazowego i obecność krwawienia śródmózgowego u dzieci i młodzieży powinien być zawsze diagnozowany badaniem CT w wersji angio. Leczenie operacyjne krwaka wewnątrzczaszkowego urazowego jest inne niż krwawienia z malformacji. Powinno się odbywać w oddziale neurochirurgii.

Piśmiennictwo

1. Raman SP, Fishman EK. Mycotic aneurysms: a critical diagnosis in emergency setting. *Emergency Radiology* 2014, 21; 191-196.

- 2. Ding D, Raper DM, Carswell A J, Liu KC.** Endovascular settings for treatment of mycotic intracranial aneurysms. *Journal of Clinical Neuroscience* 2014;21:1163-1168.
- 3. Lee WK, Mossop PJ, Little AF, Fitt GJ, Vrazas JI, Hoang JK.** Infected mycotic aneurysms: spectrum of imaging appearances and management. *Radiographics* 2008; 28:1853-1868.
- 4. Sueyoshi E, Sakamoto I, Kawahara Y, Matsuoka Y, Hayashi K.** Infected abdominal aortic aneurysm: early CT findings. *Abdominal Imaging* 1998; 23:645-648.
- 5. Vasan R, Patel J, Sweeney JM, Carpenter AM, Downes K, Youssef AS, Loveren H, Agazzi S.** Pediatric intracranial aneurysms: current national trends in patient management and treatment. *Childs Nervous System* 2013; 29:451-456.
- 6. Andaluz N, Zuccarello M.** Recent trends in the treatment of cerebral aneurysms: analysis of nationwide inpatient database. *Journal of Neurosurgery* 2008; 108:1163-1169
- 7. Steiner T, Juvela S, Unterberg A, Jung C, Forsting M, Rinkel G.** European Stroke Organization Guidelines for the Management of Intracranial Aneurysms and Subarachnoid Haemorrhage; *Cerebrovasc Dis* 2013;35:93–112
- 8. Kwiatkowski S.:** Rozwój naczyń mózgu- aspekty neurochirurgiczne. Wybrane zagadnienia diagnostyki i leczenia malformacji naczyniowych ośrodkowego układu nerwowego, pod red. R. Czepki. Wydawnictwo Uniwersytetu Jagiellońskiego, Kraków, 2007, 11-13