

Tętniaki olbrzymie naczyń mózgowych u dzieci

Giant cerebral aneurysms in children

¹ Klinika Neurochirurgii Instytutu Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi

² Zakład Radiologii Dziecięcej Instytutu Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi

Adres do korespondencji: ul. Rzgowska 281/289, 93-338 Łódź, tel.: 042 271 20 46, faks: 042 271 13 96,

e-mail: tkropiwnicki@gmail.pl, bushkek@neostrada.pl

Praca finansowana ze środków własnych

Streszczenie

Wśród ogółu pacjentów z tętniakami naczyń mózgowych pacjenci pediatryczni stanowią zdecydowaną mniejszość, jednak w tej grupie wiekowej stanowią one istotny problem kliniczny. Wynika to między innymi z faktu znacznie częstszego w stosunku do populacji dorosłych występowania tętniaków olbrzymich, których przebieg kliniczny bywa niekiedy dramatyczny. W pracy przedstawiono przypadki dwojga dzieci z tętniakami olbrzymimi naczyń mózgowych leczonych operacyjnie w Klinice Neurochirurgii Instytutu Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi. U 13-letniej dziewczynki stwierdzono obecność tętniaka o średnicy 25 mm położonego na lewej tętnicy szyjnej wewnętrznej. U 10-letniego chłopca rozpoznano tętniaka o średnicy 40 mm zlokalizowanego na prawej tętnicy środkowej mózgu. Chorzy zostali przyjęci do szpitala z objawami krwotoku podpajęczynówkowego, w stanie ciężkim. W obu przypadkach zastosowano leczenie chirurgiczne polegające na zaklipsowaniu szyi tętniaka u chłopca oraz zaklipsowaniu naczynia doprowadzającego u dziewczynki. U obojga dzieci dalszy przebieg leczenia był niepomyślny. W oparciu o prezentowane przypadki w pracy omówiono problemy związane z leczeniem dzieci z tętniakami olbrzymimi naczyń mózgowych.

SŁOWA KLUCZOWE: dzieci, tętniak olbrzymi, krwotok podpajęczynówkowy, tętnica szyjna wewnętrzna, tętnica środkowa mózgu

Summary

Although children are a minority among patients with cerebral artery aneurysms, aneurysms in this age group remain a problem not to be ignored. The cause of this is a much higher incidence of giant aneurysms in children in comparison to adults, sometimes with dramatic manifestation. Two children with giant aneurysms of cerebral arteries, operated on at the Department of Neurosurgery Polish Mother Memorial Hospital Research Institute in Łódź are presented in this paper. Thirteen-year-old girl had an aneurysm on the left internal cerebral artery (25 mm in diameter). Ten-year-old boy had an aneurysm on the right medial cerebral artery (40 mm in diameter). Both aneurysms presented with subarachnoid hemorrhage. Surgical treatment consisted of aneurysm clipping in the case of the boy and proximal internal cerebral artery ligation in case of the girl. In spite of surgery, the treatment was unsuccessful. On the basis of presented cases some problems connected with the management of pediatric patients with giant cerebral aneurysms are discussed.

KEY WORDS: children, giant aneurysms, subarachnoid hemorrhage, internal carotid artery, medial cerebral artery

WSTĘP

90 Najczęstszymi wadami naczyń mózgowych występującymi w wieku dziecięcym są zniekształcenia tętniczo-żylna. W przeciwieństwie do osób

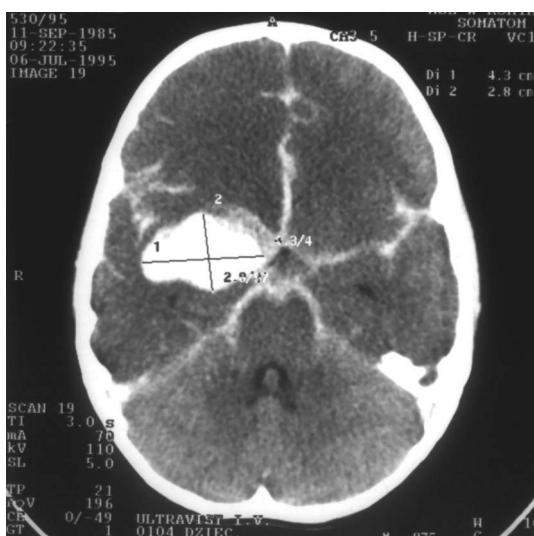
dorosłych tętniaki u dzieci obserwuje się znacznie rzadziej. Wśród nich można wyróżnić grupę tętniaków olbrzymich, czyli takich, których średnica jest równa lub większa od 25 mm⁽¹⁻⁴⁾. Odsetek tętniaków olbrzymich u dzieci jest zdecydowanie wyższy niż u dorosłych. Ze

względu na małą częstość występowania tętniaków w wieku dziecięcym z problemem tętniaków olbrzymich w praktyce klinicznej spotykamy się niezmiernie rzadko. W niniejszej pracy autorzy zaprezentowali przypadki dwojga dzieci z tętniakami olbrzymimi naczyń mózgowych, leczonych w Klinice Neurochirurgii Instytutu Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi w latach 1991-2001.

PRZYPADEK PIERWSZY

Dziesięcioletni chłopiec w trakcie zabawy z rówieśnikami stracił nagle przytomność, z następowym zatrzymaniem oddechu i krążenia. Obecna przy zdarzeniu matka dziecka (pielęgniarka) podjęła akcję reanimacyjną, która doprowadziła do powrotu krążenia. Przybyły na miejsce zdarzenia zespół reanimacyjny zaintubował pacjenta i przetransportował go do najbliższego szpitala, gdzie wykonano badanie TK głowy. Stwierdzono obecność tętniaka o średnicy 40 mm położonego w rzucie tętnicy szyjnej wewnętrznej po stronie prawej, któremu towarzyszyły masywny krwotok podpajęczynówkowy i obrzęk mózgu (rys. 1).

Po badaniu dziecko przewieziono do Kliniki Neurochirurgii ICZMP w Łodzi. W chwili przyjęcia jego stan określono jako skrajnie ciężki (V stopień w zmodyfikowanej skali Hunta-Hessa). Chłopiec był sztucznie wentylowany, niestabilny krążeniowo, wymagał podawania dużych dawek amin katecholowych. Obie źrenice były szerokie, bez reakcji na światło. Biorąc pod uwagę wiek chorego oraz stosunkowo krótki czas, jaki upłynął od wystąpienia objawów (kilka godzin), zdecydowano się na próbę leczenia chirurgicznego pomimo ciężkiego stanu dziecka. U pacjenta nie przeprowadzono badania angiograficznego naczyń mózgowych.

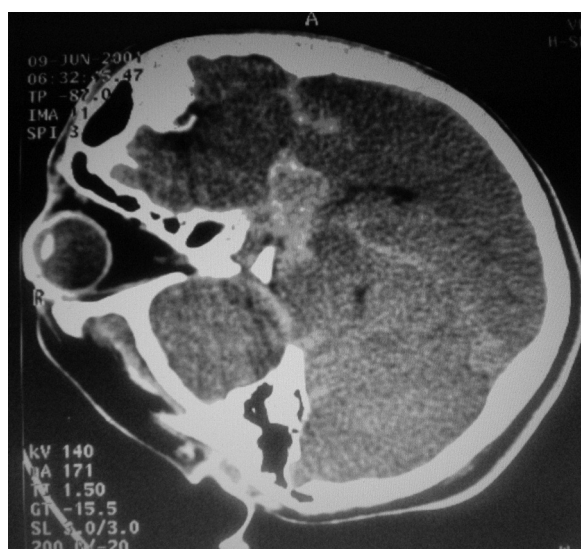


Rys. 1. Tętniak olbrzymi prawej tętnicy mózgu środkowej u 10-letniego chłopca. Badanie TK głowy po podaniu środka cieniującego

W trakcie operacji wykonano w sposób typowy kraniotomię skroniowo-czołową po stronie prawej. Po nacięciu opony twardej doszło do kolejnego masywnego krwotoku z tętniaka. Wobec nasilonego obrzęku mózgu konieczne było wykonanie częściowej resekcji płata skroniowego i czołowego po stronie prawej. Zaklipsowano szyję tętniaka na tętnicy środkowej mózgu po stronie prawej, a jego worek wycięto. W wykonanym po operacji badaniu TK głowy stwierdzono masywny obrzęk i niedokrwienie mózgu. Po zabiegu stan chorego nie ulegał poprawie. Chłopiec zmarł w pierwszej dobie po operacji.

PRZYPADEK DRUGI

Trzynastoletnia dziewczynka w trakcie zabawy z matką zgłosiła nagle silny ból głowy, wymiotowała, a następnie po kilkudziesięciu sekundach straciła przytomność. Po kilkunastu minutach dziecko odzyskało przytomność i ponownie wymiotowało. Wezwany lekarz pogotowia ratunkowego zdiagnozował u chorej zespół oponowy, afazję oraz niedowład połowiczny prawostronny. Dziewczynkę przewieziono do najbliższego szpitala, gdzie wykonano badanie TK głowy, w którym uwidocznił masywny krwotok podpajęczynówkowy z towarzyszącym mu obrzękiem mózgu. W rzucie lewej tętnicy szyjnej wewnętrznej stwierdzono obecność zmiany mogącej odpowiadać dużemu tętniakowi lub ognisku krwotocznemu (rys. 2). Dziecko było w stanie ogólnym ciężkim, ale ustabilizowanym, w pełni wydolne oddechowo i krążeniowo. W badaniu neurologicznym obok objawów oponowych stwierdzono niedowład połowiczny prawostronny oraz cechy afazji ruchowej. Stan pacjentki oceniono na III stopień w zmodyfikowanej skali Hunta-Hessa.



Rys. 2. Tętniak olbrzymi lewej tętnicy szyjnej wewnętrznej u 13-letniej dziewczynki. Badanie TK głowy po podaniu środka cieniującego

Po badaniu TK dziewczynkę przewieziono do Kliniki Neurochirurgii ICZMP w Łodzi. Na czas transportu dziecko zostało zaintubowane. Po przyjęciu do Kliniki wykonano badanie angiograficzne naczyń mózgowych, w którym stwierdzono obecność tętniaka tętnicy szyjnej wewnętrznej lewej o średnicy 25 mm (rys. 3). Chora zakwalifikowano w trybie pilnym do leczenia chirurgicznego. U pacjentki wykonano w sposób typowy kraniotomię skroniowo-czołową po stronie lewej. W trakcie nacinania opony twardej doszło do wstawiania się i pęknięcia kory mózgu płata skroniowego i czołowego, spowodowanego masywnym krwotokiem tętnicznym. Miejsce krwawienia zlokalizowano po uprzedniej częściowej resekcji płata czołowego i skroniowego mózgu wraz z licznymi fragmentami rozerwanego worka tętniaka. Źródłem krwawienia okazał się kikut tętnicy szyjnej wewnętrznej lewej tuż przy podstawie czaszki. Światło tętnicy szyjnej wewnętrznej zostało zamknięte za pomocą klipsa naczyniowego położonego powyżej tętnicy ocznej. Za pomocą klipsów naczyniowych zamknięto również intensywnie krwawiące odgałęzienia tętnicy mózgu przedniej i środkowej po stronie lewej. Pozostałe, związane jeszcze z tętnicą szyjną wewnętrzną fragmenty worka tętniaka wycięto.

Po operacji dziecko było leczone w Oddziale Intensywnej Opieki Pediatricznej ICZMP w Łodzi. Stosowano lecze-

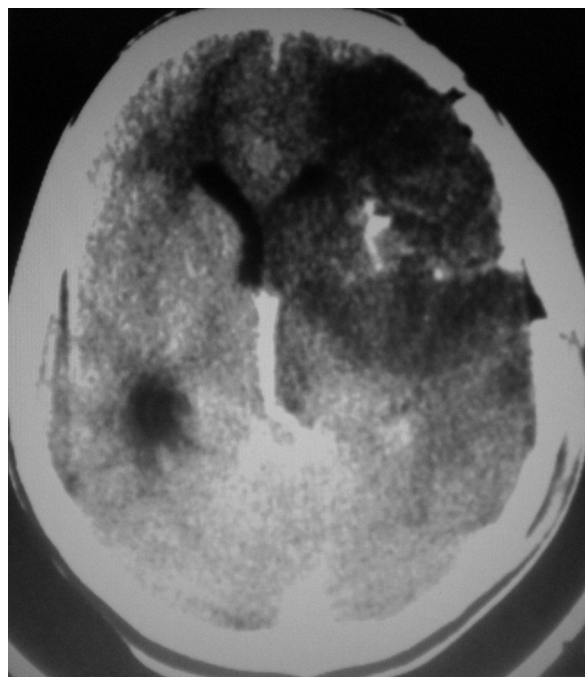


Rys. 3. Tętniak olbrzymi lewej tętnicy szyjnej wewnętrznej u 13-letniej dziewczynki. Badanie angiograficzne naczyń mózgowych po podaniu środka cieniującego do lewej tętnicy szyjnej wewnętrznej, zdjęcie w projekcji skośnej

nie przeciwozbrękowe i śpiączkę tiopentalową. Chora cały czas była niestabilna krążeniowo i wymagała stałego wlewu amin katecholowych. W pooperacyjnych badaniach TK głowy stwierdzano niedokrwienie lewej półkuli mózgu, z cechami obrzęku mózgu i obecnością krwi w nieposzerzonym układzie komorowym (rys. 4). Pomimo stosowanego leczenia stan dziecka stopniowo pogarszał się. Chora zmarła w osiemnastej dobie po operacji.

OMÓWIENIE

W populacji ogólnej chorych tętniaki olbrzymie stanowią 2-12% wszystkich tętniaków naczyń mózgowych⁽¹⁻³⁾. U dzieci odsetek ten jest jeszcze wyższy, aczkolwiek przy niewielkiej częstości występowania tętniaków w tej grupie wiekowej w praktyce klinicznej większość chorych z tętniakami olbrzymimi stanowią osoby dorosłe. W dużych grupach dzieci z tętniakami naczyń mózgowych tętniaki olbrzymie stanowią 10-20%⁽³⁻¹⁰⁾. Warty uwagi jest fakt, że tętniaki olbrzymie u dzieci poniżej piątego roku życia mogą stanowić nawet do 30% przypadków⁽¹⁰⁾. Jak wspomniano wcześniej, chore dzieci z tętniakami olbrzymimi spotyka się w praktyce klinicznej bardzo rzadko. W ciągu pierwszych 10 lat działalności (lata 1991-2001) w Klinice Neurochirurgii ICZMP w Łodzi leczono operacyjnie 22 dzieci z tętniakami naczyń mózgowych. W grupie tej było dwoje pacjentów z tętniakami olbrzymimi, którzy stanowili około 10% ogółu chorych. Wartość ta jest zbliżona do danych z piśmiennictwa.



Rys. 4. Niedokrwienie i obrzęk lewej półkuli mózgu u 13-letniej dziewczynki po zabiegu operacyjnym zamknięcia lewej tętnicy szyjnej wewnętrznej. Badanie TK głowy po podaniu środka cieniującego

Tętniaki olbrzymie u małych pacjentów mogą być zlokalizowane na różnych naczyniach kręgu tętniczego mózgu. Najczęściej, bo w ok. 40% przypadków, umiejscowione są na tętnicach szyjnych wewnętrznych, w ok. 25% przypadków na tętnicach środkowych mózgu, a w ok. 30% przypadków na naczyniach układu kręgowo-podstawnego^(3,4,6). U dzieci opisanych w niniejszej pracy oba tętniaki były położone nad namiotem mózdzku, odpowiednio na tętnicy środkowej mózgu u chłopca i tętnicy szyjnej wewnętrznej u dziewczynki.

U dzieci z tętniakami olbrzymimi naczyń mózgu choroba może się objawiać na kilka sposobów. W wyniku pęknięcia ściany tętniaka dochodzi do wystąpienia krwotoku podpajęczynówkowego, niekiedy z towarzyszącym krwotokiem śródmózgowym lub wewnątrzkomorowym (ok. 33-89% chorych). Objawy kliniczne mają charakter udarowy, pojawia się nagły silny ból głowy z następnymi wymiotami, dochodzi do utraty przytomności, czasem występują też zaburzenia oddechu i krążenia. U części pacjentów rozwijają się, zazwyczaj powoli, objawy sugerujące obecność guza śródczaszkowego (ok. 56-90% chorych). Mniejszą grupę stanowią pacjenci, u których na pierwszy plan wysuwają się objawy wodogłowia (ok. 30-56% chorych)^(1,3,4,11-22). W obu przedstawianych przypadkach wystąpienie objawów klinicznych miało charakter udarowy i było spowodowane krwotokiem z pękniętego tętniaka.

Okresowo występujące bóle głowy, poprzedzające wystąpienie właściwych objawów choroby (bóle prodromalne), obserwuje się u 10-15% chorych z tętniakami. W przypadku obojga dzieci w wywiadzie odnotowano fakt okresowego występowania takich dolegliwości. Można przypuszczać, że objawy te miały charakter prodromalny, ale nie da się tego jednoznacznie udowodnić.

Wybór metody leczenia u chorych z tętniakami olbrzymimi naczyń mózgowych w znacznej mierze zależy od ich stanu klinicznego. Najmniej inwazyjną procedurą jest wewnątrznacyniowa embolizacja, ale wykonywana tylko u niewielkiego odsetka pacjentów (ok. 6% dzieci). Metoda ta w ok. 35% przypadków przynosi bardzo dobre wyniki (chorzy nie mają deficytów neurologicznych). Trzeba jednak zaznaczyć, że do takiego postępowania chirurgicznego kwalifikuje się wyłącznie chorych w dobrym stanie klinicznym^(3,4,22-24).

Wśród klasycznych technik operacyjnych stosowanych przy zaopatrzeniu chorego dziecka z tętniakami nadal najczęściej stosuje się klipsowanie (*clipping*) szyi tętniaka. Metodą tą operowanych jest 30-53% chorych. Dość szeroko stosowaną metodą zabezpieczenia pacjenta z tętniakami olbrzymimi jest całkowite wycięcie tętniaka (*direct excision*), po wcześniejszym zaklipsowaniu jego szyi. W ten sposób zabezpiecza się około 14% dzieci z tętniakami olbrzymimi. U 6-15% dzieci stosuje się klipsowanie z dodatkowym obłożeniem tętniaka, np. fragmentem mięśnia (*wrapping*). Wyłączenie krążenia powyżej i poniżej tętniaka (*trapping*) wykonuje się tylko

u ok. 3% chorych. Inne metody, takie jak żylny przepływ omijający (*trapping bypass*) czy zaklipsowanie naczynia doprowadzającego (*hunterian ligation*), to procedury rzadziej stosowane (ok. 6% pacjentów). Warto zaznaczyć, że wyniki leczenia tymi ostatnimi metodami u dzieci są znacznie lepsze niż u dorosłych^(1-3,23-25).

Pomimo rozwoju technik diagnostycznych i operacyjnych oraz polepszenia opieki pooperacyjnej tętniaki olbrzymie nadal pozostają poważnym zagrożeniem dla życia i zdrowia chorego. Śmiertelność u dzieci z tętniakami olbrzymimi wynosi 11-20%. Duże znaczenie ma także sposób ujawnienia się choroby. U pacjentów z krwotokiem z pękniętego tętniaka śmiertelność jest wyraźnie wyższa i wynosi 13-36%^(1,3,4). Pomimo tak dużego odsetka chorych z niepomyślnym przebiegiem choroby, rokowanie u dzieci jest i tak zdecydowanie lepsze niż u osób dorosłych. U tych ostatnich śmiertelność sięga nawet 85%⁽²⁵⁾.

W obu przedstawionych przypadkach do wystąpienia objawów choroby doszło w wyniku krwotoku z tętniaka, co od początku znacząco pogarszało rokowanie. O ile w przypadku drugiej chorej, znajdującej się w III grupie w zmodyfikowanej skali Hunta-Hessa, kwalifikacja do zabiegu była oczywista, o tyle w pierwszym przypadku – chłopca znajdującego się w V grupie, od początku istniały wątpliwości co do sensu podejmowania leczenia chirurgicznego. Na decyzji o podjęciu próby leczenia zaważyły jednak względy etyczne, przede wszystkim wiek chorego oraz stosunkowo krótki czas, jaki upłynął od wystąpienia krwotoku (poniżej 24 godzin).

Ściana tętniaka olbrzymiego jest w swojej strukturze bardzo delikatna. Słaby rozwój błony sprężystej zewnętrznej i przydanki oraz przerwy w błonie mięśniowej mogą sprzyjać dalszemu pękaniu tętniaka i w efekcie wystąpieniu kolejnego krwotoku. Podczas otwarcia opony twardej dochodzi do zachwiania świeżo wytworzonej równowagi hemodynamicznej pomiędzy trzema składnikami przestrzeni wewnątrzczaszkowej: krwią w naczyniach, płynem mózgowo-rdzeniowym oraz tkankami mózgu. W rezultacie często dochodzi do ponownego krwotoku z tętniaka, co znacząco pogarsza warunki operacji i w efekcie wpływa ujemnie na jej ostateczne wyniki^(1-3,6,22,23,25). U obojga operowanych dzieci doszło do śródoperacyjnego pęknięcia tętniaka w takim mechanizmie. W przypadku drugiej chorej wystąpienie krwotoku zaważyło, jak się wydaje w sposób znaczący, na końcowym wyniku leczenia.

WNIOSKI

Tętniaki olbrzymie naczyń mózgowych u dzieci, pomimo ich rzadkiego występowania, są poważnym problemem klinicznym, zwłaszcza w przypadkach objawiających się krwotokiem wewnątrzczaszkowym.

PIŚMIENNICTWO:

BIBLIOGRAPHY:

1. Shibuya M., Sugita K.: Intracranial giant aneurysms. W: Youmans J.R. (red.): Neurological Surgery. Wyd. 4, W.B. Saunders Company, Philadelphia 1996: 1310-1319.
2. Ząbek M. (red.): Zarys neurochirurgii. Wyd. 1, Wydawnictwo Lekarskie PZWL, Warszawa 1999, rozdział 18: 297-298.
3. Khoo L.T., Levy M.L.: Intracerebral aneurysms. W: Albright A.L., Pollack I.F., Adelson P.D. i wsp. (red.): Principles and Practice of Pediatric Neurosurgery. Thieme Medical Publishers, Inc., New York 1999: 973-1001.
4. Herman J.M., Rekate H.L., Spetzler R.F.: Pediatric intracranial aneurysms: simple and complex cases. *Pediatr. Neurosurg.* 1991-1992; 17: 66-72, 73.
5. Amacher A.L., Drake C.G.: The results of operating upon cerebral aneurysms and angiomas in children and adolescents. I. Cerebral aneurysms. *Childs Brain* 1979; 5: 151-165.
6. Huang J., McGirt M.J., Gailloud P., Tamargo R.J.: Intracranial aneurysms in the pediatric population: case series and literature review. *Surg. Neurol.* 2005; 63: 424-433.
7. Meyer F.B., Sundt T.M. Jr, Node N.C. i wsp.: Cerebral aneurysms in childhood and adolescence. *J. Neurosurg.* 1989; 70: 420-425.
8. Gerosa M., Licata C., Fiore D.L., Iraci G.: Intracranial aneurysms of childhood. *Childs Brain* 1980; 6: 295-302.
9. Humphreys R.P., Hendrick E.B., Hoffman H.J.: Cerebrovascular disease in children. *Can. Med. Assoc. J.* 1972; 107: 774-776, 778-779, 781.
10. Hacker R.J.: Intracranial aneurysms of childhood: a statistical analysis of 500 cases from world literature. *Neurosurgery* 1982; 10: 775.
11. Ferrante L., Fortuna A., Celli P. i wsp.: Intracranial arterial aneurysms in early childhood. *Surg. Neurol.* 1988; 29: 39-56.
12. Locksley H.B.: Natural history of subarachnoid hemorrhage, intracranial aneurysms and arteriovenous malformations. Based on 6368 cases in the cooperative study. *J. Neurosurg.* 1966; 25: 219-239.
13. Wiebers D.O., Whisnant J.P., O'Fallon W.M.: The natural history of unruptured intracranial aneurysms. *N. Engl. J. Med.* 1981; 304: 696-698.
14. Amacher A.L., Drake C.G., Ferguson G.G.: Posterior circulation aneurysms in young people. *Neurosurgery* 1981; 8: 315-320.
15. Ito M., Yoshihara M., Ishii M. i wsp.: Cerebral aneurysms in children. *Brain Dev.* 1992; 14: 263-268.
16. Allison J.W., Davis P.C., Sato Y. i wsp.: Intracranial aneurysms in infants and children. *Pediatr. Radiol.* 1998; 28: 223-229.
17. Greenberg M.S.: Handbook of Neurosurgery. Wyd. 4, Thieme Medical Publishers, Inc., New York 2001: 791.
18. Lawton M.T., Spetzler R.F.: Surgical strategies for giant intracranial aneurysms. *Acta Neurochir. Suppl.* 1999; 72: 141-156.
19. Massimi L., Moret J., Tamburrini G., Di Rocco C.: Dissecting giant vertebro-basilar aneurysms. *Childs Nerv. Syst.* 2003; 19: 204-210.
20. Mawad M.E., Klucznik R.P.: Giant serpentine aneurysms: radiographic features and endovascular treatment. *AJNR Am. J. Neuroradiol.* 1995; 16: 1053-1060.
21. Warlow C.: Neurologia. Wydawnictwo Lekarskie PZWL, Warszawa 1996: 246-253.
22. Hahn C.D., Nicolle D.A., Lownie S.P., Drake C.G.: Giant cavernous carotid aneurysms: clinical presentation in fifty-seven cases. *J. Neuroophthalmol.* 2000; 20: 253-258.
23. Swamy N.K., Pope F.M., Coakham H.B.: Giant aneurysm of internal carotid artery in a four-year-old child: a case report. *Surg. Neurol.* 1993; 40: 138-141.
24. Kanaan I., Lasjaunias P., Coates R.: The spectrum of intracranial aneurysms in pediatrics. *Minim. Invasive Neurosurg.* 1995; 38: 1-9.
25. Song D.L., Leng B., Zhou L.F. i wsp.: Onyx in treatment of large and giant cerebral aneurysms and arteriovenous malformations. *Chin. Med. J. (Engl.)* 2004; 117: 1869-1872.

Szanowni Prenumeratory!

Uprzejmie przypominamy, że zgodnie z rozporządzeniem Ministra Zdrowia z dn. 6 października 2004 roku w sprawie sposobów dopełnienia obowiązku doskonalenia zawodowego lekarzy i lekarzy dentyistów prenumerata czasopisma „AKTUALNOŚCI NEUROLOGICZNE” – indeksowanego w Index Copernicus – umożliwi doliczenie 5 punktów edukacyjnych do ewidencji doskonalenia zawodowego. Podstawą weryfikacji jest dowód opłacenia prenumeraty lub zaświadczenie wydane przez Wydawcę.