

Endoskopowe leczenie przepukliny oponowo-mózgowej z towarzyszącym płynotokiem nosowym – – opis przypadków klinicznych

Endoscopic treatment of sphenoidal meningoencephalocele with accompanying nasal rhinorrhea – case report

Anna Antonowicz-Olewicz¹, Adam Rudnik¹, Nikodem Przybyłko¹, Krzysztof Suszyński²

Received: 20.06.2014
Revised: 25.08.2014
Accepted: 08.09.2014
Published online: 12.11.2014

STRESZCZENIE

WSTĘP

Przepukliny oponowo-mózgowe są rzadką patologią polegającą na przemieszczeniu opon mózgowych i/lub struktur mózgowia przez ubytek kostny w pokrywie lub podstawie czaszki. Stosunkowo częściej występują u dzieci, ujawniając się już w pierwszych miesiącach życia. U dorosłych najczęściej wykrywane są przypadkowo, w trakcie diagnostyki samoistnego płynotoku nosowego lub nawracającego zapalenia opon mózgowo-rdzeniowych.

MATERIAŁ I METODY

W pracy przedstawiono 2 pacjentów, których leczono operacyjnie z powodu płynotoku nosowego wtórnego do przepuklin oponowo-mózgowych. U pierwszego pacjenta jedyną manifestacją przepukliny oponowo-mózgowej był samoistny płynotok nosowy, u drugiego płynotok nosowy i bakteryjne zapalenie opon mózgowo-rdzeniowych. U obu pacjentów wykonano endoskopową przezklinową plastykę ubytku kostnego, z odprowadzeniem przepukliny, u jednego zastosowano dodatkowo zewnętrzny drenaż łądźwiowy.

WNIOSKI

Każdy przypadek samoistnego płynotoku nosowego wymaga wnikliwej analizy, ze szczególnym uwzględnieniem diagnostyki obrazowej. Mimo rzadkiego występowania przepuklin oponowo-mózgowych u dorosłych, należy pamiętać o tej przyczynie płynotoku nosowego, bowiem właściwe rozpoznanie i leczenie takiej patologii stwarzają możliwość całkowitego wyleczenia pacjenta i zapobiegają niebezpiecznym powikłaniom.

SŁOWA KLUCZOWE

klinowe przepukliny oponowo-mózgowe, samoistny płynotok nosowy, przezklinowy przynosowy zabieg endoskopowy

¹Katedra i Klinika Neurochirurgii
Wydziału Lekarskiego w Katowicach
Śląskiego Uniwersytetu Medycznego
w Katowicach
²Katedra Fizjoterapii Wyższej Szkoły Biznesu
w Dąbrowie Górniczej

ADRES DO KORESPONDENCJI:

Lek. Anna Antonowicz-Olewicz
Katedra i Klinika Neurochirurgii
Wydziału Lekarskiego w Katowicach
Śląskiego Uniwersytetu Medycznego
w Katowicach
ul. Medyków 14
40-752 Katowice
tel./fax 32 789 45 02
e-mail: annantonowicz@gmail.com

Ann. Acad. Med. Siles. 2014, 68, 5, 385–389
Copyright © Śląski Uniwersytet Medyczny
w Katowicach
eISSN 1734-025X
www.annales.sum.edu.pl

ABSTRACT

BACKGROUND

Meningoencephalocele is a rare pathology, characterized by protrusion of the meninges and/or cerebral structures, due to bone defect in the skull or cranial base. It is manifested relatively more frequently in children, already in their first months of life. In adults, it is usually diagnosed accidentally, in the course of diagnostics of spontaneous nasal rhinorrhea or recurring cerebrospinal meningitis.

MATERIAL AND METHODS

This study reports two cases of patients who underwent surgical treatment due to nasal rhinorrhea, secondary to meningoencephalocele. In the first patient, spontaneous rhinorrhea was the only manifestation of the meningoencephalocele, in the second the signs were nasal rhinorrhea and a history of bacterial cerebrospinal meningitis. In both patients, an endoscopic endonasal reconstructive operation of the bone defect was performed, with reduction of the hernia, in one case an external lumbar drainage was additionally applied.

CONCLUSION

Each case of spontaneous nasal rhinorrhea calls for thorough analysis, with particular emphasis on medical imaging. Despite the rare occurrence of meningoencephalocele in adults, one should keep it in mind as a cause of nasal rhinorrhea, because correct diagnosis and treatment of this pathological condition creates the possibility of curing the patient completely, and prevents dangerous complications.

KEY WORDS

sphenoidal meningoencephalocele, spontaneous nasal rhinorrhea, endoscopic endonasal surgery

WSTĘP

Wśród przepuklin oponowo-mózgowych wyróżniamy postacie nabyte, związane z urazem czaszkowo-mózgowym, zabiegami w rejonie siodła tureckiego i zatok przynosowych czy procesami ekspansywnymi/zapalnymi obejmującymi przedni dół czaszki [1,2], a także z przewlekłym nadciśnieniem śródczaszkowym [3], oraz wrodzone, będące anomalią rozwojową, wynikającą z nieprawidłowego zamknięcia dogłowego odcinka pierwotnej cewy nerwowej lub uszkodzenia pokrywy mezodermalnej zarodka w 4 tygodniu życia płodowego [4]. Coraz częściej pisze się o nieprawidłowym procesie embriogenezy kości klinowej, w tym o powstawaniu i przetrwaniu wrodzonego ubytku kostnego w obrębie bocznej ściany zatoki klinowej, zwanego kanałem Sternberga lub bocznym kanałem czaszkowo-gardłowym, jako procesach sprzyjających formowaniu się przepuklin oponowo-mózgowych i przyczynach samoistnego płynotoku nosowego [1].

Według klasyfikacji Suwanwela, opartej na miejscu występowania ubytku kostnego, przepukliny oponowo-mózgowe dzieli się na przepukliny sklepienia (okolicy potylicznej, czołowej i ciemieniowej) i podstawy czaszki: sitowe, klinowo-sitowe, klinowe, czołowo-klinowe lub klinowo-oczodołowe [4,5]. Zgodnie z podziałem Abiko, wyróżnia się ponadto typ śródkli-

nowy (*intrasphenoidal type*) i prawdziwy przezklinowy (*true transsphenoidal type*) przepuklin oponowo-mózgowych w obrębie zatoki klinowej [5,6]. Podział ten ma znaczenie kliniczne i wskazuje wybór metody postępowania terapeutycznego. Zdaniem niektórych autorów, jedynie typ śródklinowy, z towarzyszącym płynotokiem kwalifikuje się do leczenia operacyjnego. Prawdziwy typ przezklinowy ma bardziej złożoną budowę, a tym samym stawia większe wyzwanie operatorowi, a jednocześnie powoduje mniej objawów klinicznych, wymagających szybkiego zaopatrzenia chirurgicznego [5].

Częstość występowania przepuklin oponowo-mózgowych wynosi 1/3–5 tys. żywo urodzonych dzieci, a samych przepuklin podstawy czaszki 1/35 tys., w tym zaledwie 1/700 tys. dotyczy przepuklin w obrębie zatoki klinowej [7,8].

Istnieją różne teorie dotyczące powstawania przepuklin w obrębie zatoki klinowej. Jedna z nich opiera się na nieprawidłowym łączeniu się ognisk kostnienia w poszczególnych składowych zatoki klinowej we wczesnych fazach ontogenezy, inna wskazuje na przetrwały kanał czaszko-gardłowy, zwany kanałem Sternberga, jako źródło przepukliny [1,2,4,5].

Większość przepuklin oponowo-mózgowych w obrębie zatoki klinowej jest diagnozowana w pierwszych latach życia z powodu manifestacji klinicznej (głównie pod postacią ostrych zaburzeń oddychania) oraz towarzyszących jej anomalii twarzoczaszki, jak rozsz-

czep podniebienia i warg, hiperteloryzm, czy zaburzeń widzenia wynikających z hipoplazji nerwu wzrokowego i zaburzeń funkcjonowania siatkówki. Dużo rzadziej przepukliny oponowo-mózgowe rozpoznaje się u dorosłych, u których manifestują się najczęściej płynotokiem nosowym, ubytkami pola widzenia, zaburzeniami hormonalnymi czy nawracającym zapaleniem opon mózgowo-rdzeniowych [4,5].

W diagnozowaniu przepuklin oponowo-mózgowych zasadniczą rolę odgrywają badania obrazowe:

- TK głowy, ze szczególnym uwzględnieniem przekrojów czołowych i strzałkowych, na podstawie których można określić miejsce ubytku kostnego oraz rozpoznać nieprawidłowe masy w zatoce klinowej,
- MRI głowy do oceny miękkich tkanek w obrębie zatoki klinowej (przepukliny oponowe w T1 hipointensywne, w T2 – hiperintensywne; tkanka nerwowa w przepuklinach mózgowych w T1 i T2 isointensywna, a w przypadku dysplazji korowej obraz hiperintensywny w T2) [6,8,9].

W związku z rzadkim występowaniem przepuklin oponowo-mózgowych oraz niewielką liczbą publikacji dotyczących tej patologii brak dotąd wypracowanych standardów postępowania. Każdy przypadek musi być dokładnie zdiagnozowany, a wybór metody leczenia trzeba dobrać indywidualnie do każdego chorego [8,9]. W pracy przedstawiono przypadki kliniczne 2 pacjentów z przepuklinami oponowo-mózgowymi w obrębie zatoki klinowej, z towarzyszącym płynotokiem nosowym, których operowano metodą endoskopową. Na tej podstawie przeanalizowano cel i metody leczenia tej rzadkiej anomalii, stanowiącej nadal wyzwanie dla neurochirurgii.

Opis przypadku 1

Pacjentka 53-letnia przyjęta do Kliniki w celu leczenia płynotoku nosowego, trwającego od ponad 6 miesięcy. Początkowo leczona laryngologicznie z powodu przewlekłego nieżyty nosa. Po miesiącu nieskutecznego leczenia, na podstawie badań dodatkowych, potwierdzono wyciek płynu mózgowo-rdzeniowego z lewego przewodu nosowego. Badania obrazowe, w tym TK głowy z podaniem środka kontrastowego do kanału kręgowego oraz MRI głowy, sugerowały obecność źródła wycieku w zatoce klinowej, jednak badania nie wykazały obecności przepukliny oponowo-mózgowej. Brak urazu głowy w wywiadzie. U pacjentki występowała wrodzona wada prawej stopy – zniekształcenie stawu śródstopno-paliczkowego palucha, brak paliczek dystalnych palców I–IV. W okresie niemowlęcym pacjentka przeszła zabieg usunięcia zmiany skórnej okolicy potylicznej. Pierwotnie, w innym ośrodku, zastosowano zewnętrzny drenaż łędźwiowy przez 10 dni, nie uzyskując ustąpienia płynotoku.

Po przyjęciu na oddział pacjentkę operowano metodą endoskopową drogą przezklinową. Śródoperacyjnie stwierdzono obecność przepukliny oponowo-móz-

gowej z wyciekami PMR w górnobocznej części zatoki klinowej po lewej stronie. Wyciek zaopatrzono używając kolagenowej gąbki zawierającej fibrynogen i trombinę (Tachosil®). W I dobie po zabiegu, po usunięciu opatrunku z nosa, pojawił się masywny płynotok. Pacjentkę reperowano w II dobie, wykonując plastykę ubytku z użyciem kolagenowej gąbki (Tachosilu®) i kleju tkankowego. Ponadto założono zewnętrzny drenaż łędźwiowy. Po drugim zabiegu uzyskano wyleczenie. Pacjentkę wypisano do domu w 10 dobie. Okres obserwacji – 30 miesięcy.

Opis przypadku 2

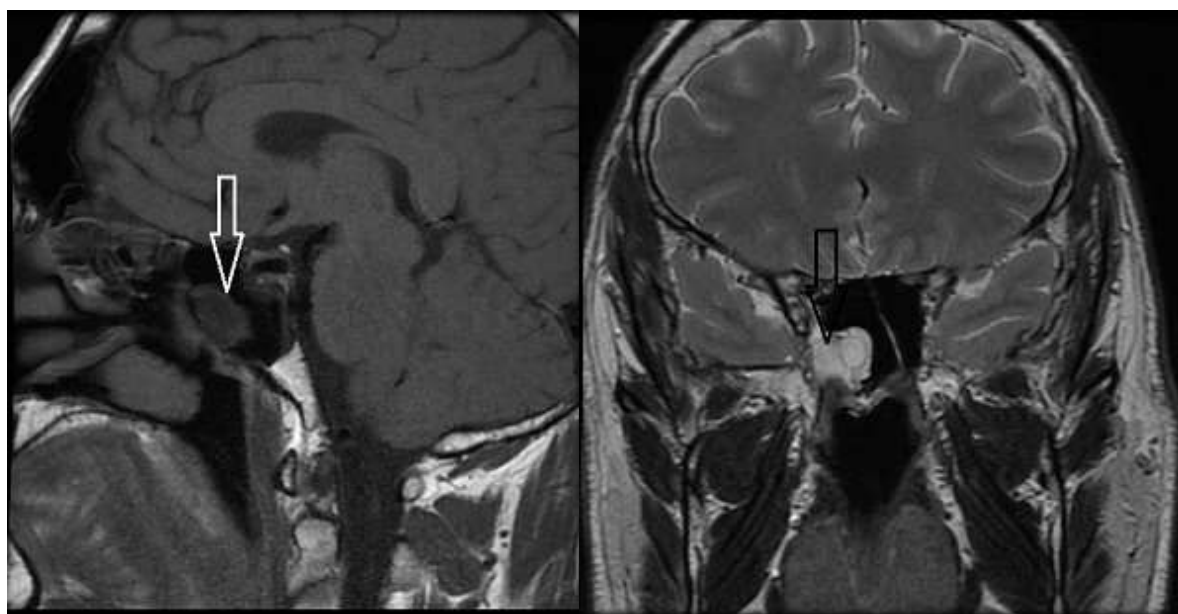
Pacjent 49-letni, pierwotnie hospitalizowany (marzec 2010 r.) na oddziale neurologicznym, gdzie trafił z powodu zaburzeń świadomości, silnego bólu okolicy czołowej, gorączki oraz trwającego około 2 tygodni wycieku wodnistej wydzieliny z nosa. Na podstawie stanu klinicznego i badań dodatkowych rozpoznano bakteryjne zapalenie opon mózgowo-rdzeniowych (ZOMR), posiew płynu mózgowo-rdzeniowego wykazał obecność *S. pneumoniae*. Wdrożono antybiotykoterapię uzyskując wyleczenie. Po konsultacji laryngologicznej chorego zakwalifikowano do usunięcia zdiagnozowanej w badaniach obrazowych zmiany w obrębie zatok przynosowych. W badaniu histopatologicznym materiału pobranego w czasie zabiegu rozpoznano *Sinusitis chronica poliposa cum cholesteroli*. Po zabiegu wystąpiło nasilenie wycieku z prawego przewodu nosowego. Z tego powodu pacjenta hospitalizowano w Klinice Neurochirurgii (listopad–grudzień 2010 r.), gdzie w badaniach laboratoryjnych potwierdzono płynotok nosowy, a w badaniach obrazowych (TK głowy z rekonstrukcją w płaszczyznach strzałkowych i poprzecznych) wykryto przerwanie ciągłości kości czaszki na poziomie boczno-dolnej części ściany zatoki klinowej po prawej stronie, z polipowatym pogrubieniem błony śluzowej w miejscu ubytku (ryc. 1).

Przed operacją wykonano badanie MRI przysadki mózgowej, w którym rozpoznano polipowaty twór wpuklający się do zatoki klinowej (ryc. 2a i 2b).

Pacjenta operowano metodą endoskopową z dostępu przezklinowego, wykonując plastykę dna siodła tureckiego z użyciem kolagenowej gąbki z fibrynogenem i trombiną (Tachosil®) i autogenego tłuszczu pobranego z okolicy lewego biodra. Śródoperacyjnie potwierdzono obecność ubytku kostnego w obrębie kości klinowej, z towarzyszącą przepukliną oponowo-mózgową i czynnym wypływem PMR. Po zabiegu, w znieczuleniu ogólnym, założono zewnętrzny drenaż łędźwiowy. W wyniku zastosowanego leczenia uzyskano ustąpienie płynotoku nosowego. Chorego wypisano do domu w 7 dobie po zabiegu. Okres obserwacji – 3 miesiące. Operację wykonano po 9 miesiącach od wystąpienia płynotoku i zapalenia opon mózgowo-rdzeniowych.



Ryc. 1. Obraz TK głowy, okno kostne, rekonstrukcja w płaszczyźnie czołowej. Biała strzałka wskazuje ubytek kości w górnobocznej części zatoki klinowej. Czarna strzałka wskazuje worek przepukliny.
Fig. 1. Coronal CT scan section (bone window) – white arrow showing bone defect in superior-lateral part of sphenoid sinus; meningoencephalocele within sphenoid sinus (black arrow).



Ryc. 2. Obraz MR przysadki, w sekwencji T1, przekrój strzałkowy (a). Obraz MR przysadki, w sekwencji T2, przekrój czołowy (b). Strzałki wskazują worek przepukliny wpuklający się do zatoki klinowej.
Fig 2. Hypophysis MRI – sagittal (a) T1-weighted and coronal (b) T2-weighted MRI scans showing hemial sac (meningoencephalocele) extending to sphenoid sinus.

DYSKUSJA

Klinowe przepukliny oponowo-mózgowe u dorosłych są rzadką patologią, zaś opracowania na ten temat są – jak dotąd – nieliczne (głównie opisy przypadków lub prace poglądowe, brak prac z analizą statystyczną) [3,5,6]. Nie wypracowano więc standardów postępo-

wania leczniczego. Część autorów podkreśla brak korzyści wynikających z leczenia operacyjnego, a nawet pisze o zwiększonej zachorowalności i śmiertelności po zabiegach operacyjnych [4,8]. Inni postulują, aby operacje przeprowadzać możliwie szybko w celu zapobieżenia ryzyku infekcji ośrodkowego układu nerwowego (OUN) czy uszkodzenia worka przepuklinowego i jego zawartości, zwłaszcza

w przypadku takich objawów, jak płynotok, nawracające zapalenie opon mózgowo-rdzeniowych i postępujące zaburzenia widzenia [5,6,8].

W trakcie podejmowania decyzji o dalszym leczeniu istotna jest dokładna ocena stanu klinicznego pacjenta oraz wykonanie badań obrazowych (TK głowy z rekonstrukcjami strzałkowymi i czołowymi oraz MRI głowy), aby uniknąć nieprawidłowego leczenia, szczególnie w przypadku występowania niejednorodnych patologicznych mas w obrębie zatok przynosowych. Ważne jest określenie, czy przepuklina jest typem śródklinowym, czy prawdziwym przezklinowym, gdyż determinuje to sposób leczenia [5,6].

Każdy przypadek samoistnego płynotoku nosowego (bez urazu, operacji w okolicy siodła tureckiego i na zatokach przynosowych czy nowotworu w obrębie przedniego dołu czaszki), należy poddać szczególnej diagnostyce w celu uniknięcia przedwczesnej decyzji o operacji, czego przykładem może być pacjent opisany w 2 przypadku [3,2]. Na podstawie piśmiennictwa można stwierdzić, iż panuje tendencja do wyboru przezklinowych metod endoskopowych jako bezpiecznych i efektywnych [1,2,5,6].

Opisane w pracy przypadki wydają się potwierdzać słuszność wyboru małoinwazyjnej metody endoskopowej w zaopatrywaniu śródklinowych przepuklin oponowo-mózgowych z towarzyszącym płynotokiem nosowym.

WNIOSKI

Każdy pacjent z potwierdzonym płynotokiem nosowym wymaga szczegółowej diagnostyki obrazowej. W przypadkach płynotoku o niejasnej etiologii należy rozważyć możliwość współwystępowania przepukliny oponowo-mózgowej. Istotne jest wówczas poszerzenie diagnostyki o TK głowy w projekcjach czołowych i strzałkowych lub/i MRI głowy lub przysadki mózgowej.

Pacjenci z płynotkiem nosowym wymagają zaopatrzenia chirurgicznego, w celu zapobiegania infekcjom OUN. Wydaje się, że w większości przypadków płynotoku nosowego wtórnego do przepuklin oponowo-mózgowych w zatoce klinowej, małoinwazyjne leczenie endoskopowe jest metodą wystarczającą i efektywną.

PIŚMIENNICTWO

1. Tabae A., Anand V., Cappabianca P., Stamm A., Esposito F., Schwartz T. Endoscopic management of spontaneous meningoencephalocele of the lateral sphenoid sinus. *J. Neurosurg.* 2010; 112: 1070–1077.
2. Blaivie C., Lequeux T., Kampouridis S., Louryan S., Saussez S. Congenital transsphenoidal meningocele: case report and review of the literature. *Am. J. Otolaryngol.* 2006; 27: 422–424.
3. Kumar K., Ganapathy K., Sumathi V., Rangachari V., Sundararajan I., Govindaraja R. Adult intranasal meningoencephalocele presenting as a nasal polyp. *J. Clin. Neurosci.* 2005; 12: 594–596.
4. Formica F., Iannelli A., Paludetti G., Di Rocco C. Transsphenoidal meningoencephalocele. *Childs Nerv. Syst.* 2002; 18: 295–298.
5. Jabre A., Tabbador R., Samaraweera R. Transsphenoidal Meningoencephalocele in adults. *Surg. Neurol.* 2000; 54: 183–188.
6. Saito K., Toda M., Sano K., Tomita T., Ogawa K., Yshida K. Application of the endoscopic transsphenoidal approach to true type transsellar

transsphenoidal meningoencephalocele in an adult: a case report and literature review. *Acta Neurochir.* 2012; 154: 1511–1515.

7. Kumar D., Maheshwari A., Rath B. et al. Transsphenoidal meningoencephalocele: A rare cause of respiratory distress in a neonate. *J. Pediatr. Neurosci.* 2011; 6: 118–120.

8. Franco D., Alonso N., Ruas R., de Silva E., Freitas R., Franco T. Transsphenoidal meningoencephalocele associated with cleft lip and palate: challenges for diagnosis and surgical treatment. *Childs Nerv. Syst.* 2009; 25: 1455–1458.

9. Mukerji S., Parmar H., Gujar S., Passamani P. Intranasal meningoencephalocele presenting as a nasal polyp – a case report. *Clin. Imaging* 2011; 35: 309–311.

10. Rudnik A., Zawadzki T., Wojtacha M. et al. Endoscopic Transnasal Transsphenoidal Treatment of Pathology of the Sellar Region. *Minim. Invasive Neurosurg.* 2005; 48: 101–107.