ЛИЦЕВАЯ БОЛЬ ВСЛЕДСТВИЕ МИГРАЦИИ ШУНТА, УСТАНОВЛЕННОГО ПО МЕТОДУ ТОРКИЛЬДСЕНА

А.В. Бервицкий¹, Г.И. Мойсак^{1,2}, А.Б. Дмитриев¹, Д.А. Рзаев^{1,2}

¹ФГБУ «Федеральный центр нейрохирургии» Минздрава России (Новосибирск); Россия, 630087 Новосибирск, ул. Немировича-Данченко, 132/1;

²Институт медицины и психологии В. Зельмана ФГАОУ ВО «Новосибирский национальный исследовательский государственный университет»; Россия, 630090 Новосибирск, ул. Пирогова, 1

Контакты: Анатолий Владимирович Бервицкий a_bervitskiy@neuronsk.ru

Введение. В научной литературе описано небольшое количество случаев лицевой боли, обусловленной различными патологиями на уровне краниовертебрального сочленения, однако не представлено ни одного случая возникновения лицевой боли вследствие миграции элементов шунтирующих систем.

Цель работы — описание клинического случая успешного хирургического лечения лицевой боли, которую вызвала миграция шунта, установленного в ходе операции Торкильдсена.

Клиническое наблюдение. Больная 58 лет обратилась в клинику с жалобами на постоянную жгучую боль с пароксизмальным компонентом в левой половине лица и затылке, связанную с движениями головы, а также на головную боль, сопровождающуюся тошнотой, онемение конечностей, неустойчивость в вертикальном положении, недержание мочи, нарушение проприоцептивной чувствительности конечностей. Из анамнеза известно, что в 2000 г. у пациентки была проведена вентрикулоцистерностомия по Торкильдсену по поводу окклюзионной гидроцефалии после перенесенной нейроинфекции. В 2013 г. по поводу нарушения функционирования шунта выполнена эндоскопическая тривентрикулостомия с хорошим клиническим эффектом. Ухудшение наступило в январе 2018 г. При поступлении в стационар по данным томографии головного мозга выявлена миграция дистального конца шунта в вещество спинного мозга, сирингобулбия на уровне позвонка С₇. Признаков нейроваскулярного конфликта тройничных нервов не выявлено. Выполнено удаление вентрикулоцистернального шунта, раздражавшего спинальное ядро тройничного нерва. В послеоперационном периоде снизилась интенсивность пароксизмального компонента лицевой боли. На 5-е сутки после операции больная выписана в удовлетворительном состоянии. На протяжении 1 года 6 мес после операции лицевая боль отсутствует. Проявления гидроцефалии и поражения спинного мозга (онемение конечностей, неустойчивость, недержание мочи) сохраняются, однако ввиду компенсированного состояния пациентки, отрицательного результата тар-теста, наличия признаков функционирующей тривентрикулостомы от дальнейших вмешательств решено воздержаться.

Заключение. Данный клинический случай демонстрирует успешное лечение лицевой боли, развившейся по редкой причине — вследствие миграции почти не встречающегося в настоящее время шунта, установленного по методу Торкильдсена.

Ключевые слова: вентрикулоцистерностомия по Торкильдсену, операция Торкильдсена, шунт, сирингобулбия, лицевая боль, спинальное ядро тройничного нерва

Для цитирования: Бервицкий А.В., Мойсак Г.И., Дмитриев А.Б., Рзаев Д.А. Лицевая боль вследствие миграции шунта, установленного по методу Торкильдсена. Нейрохирургия 2020;22(1):71–6.

DOI: 10.17650/1683-3295-2020-22-1-71-76

Facial pain, caused by Torkildsen shunt migration

A. V. Bervitskiy¹, G. I. Moysak^{1,2}, A. B. Dmitriev¹, D. A. Rzaev^{1,2}

¹Federal Neurosurgical Center (Novosibirsk), Ministry of Health of Russia; 132/1 Nemirovicha-Danchenko St., Novosibirsk 630087, Russia;

²V. Zelman Institute for Medicine and Psychology, Novosibirsk State University; 1 Pirogova St., Novosibirsk 630090, Russia

Introduction. The literature showed a limited number of cases of facial pain caused by pathology at the level of the craniovertebral junction, however there is no a single case of pain caused by the migration of elements of the shunt systems.

The objective is to describe a clinical case of successful surgical treatment of facial pain caused by the Torkildsen shunt migration.

Clinical case. A female patient, 58 years old, applied to the clinic complaining of constant pain with a paroxysmal component in the left part of the face and back of the skull associated with head movements. Other complaints included a headache accompanied by nausea, numbness in the limbs, instability in vertical position, urinary incontinence, abnormal proprioceptive sensitivity in the limbs. Medical history showed that in 2000 the patient underwent Torkildsen procedure (ventriculo-cisternostomy) due to occlusive hydrocephalus after a neurological infection. In 2013, due to shunt dysfunction endoscopic third ventriculostomy was performed with a good clinical effect. Deterioration

started in January of 2018. At hospitalization, tomography of the brain showed migration of the distal end of the shunt into spinal matter, syringobulbia at the C₇ vertebra level. No signs of neurovascular conflict of the trifacial nerves were observed. Removal of the ventriculo-cisternal shunt irritating the spinal nucleus of the trifacial nerve was performed. In the postoperative period, intensity of the paroxysmal component of facial pain decreased. At day 5 after surgery, the patient was discharged in a satisfactory state. For 1 year and 6 months after the surgery, facial pain has been absent. Manifestations of hydrocephalus and spinal disorder (numbness of the limbs, instability, urinary incontinence) persist, but due to the patient's compensated state, negative result of the tap-test, signs of functional third ventriculostomy, it was decided to abstain from further interventions.

Conclusion. This clinical case demonstrated successful treatment of facial pain developed due to a rare cause — migration of a Torkildsen shunt that currently is rarely encountered.

Key words: Torkildsen procedure, ventriculocisternostomy, ventriculocisternal shunt, syringobulbia, facial pain, spinal nuclei of trigeminal nerve

For citation: Bervitskiy A.V., Moysak G.I., Dmitriev A.B., Rzaev D.A. Facial pain, caused by Torkildsen shunt migration. *Neyrokhirurgiya = Russian Journal of Neurosurgery* 2020;22(1):71–6. (In Russ.).

ВВЕДЕНИЕ

Арне Торкильдсен (1899–1968) — норвежский нейрохирург, разработавший в середине XX в. первый вариант ликворшунтирующей операции для лечения окклюзионной гидроцефалии — вентрикулоцистерностомию. Эта операция впоследствии получила его имя [1]. В настоящее время данный метод утратил актуальность, однако все еще можно встретить больных с шунтами, установленными по Торкильдсену несколько лет назад. Функционирующий шунт подобного типа в наши дни является казуистикой [2].

В данной статье описан клинический случай хирургического лечения типичного осложнения операции Торкильдсена — миграции шунта, приведшей к нетипичной симптоматике, а именно к развитию лицевой боли.

КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ

Пациентка, 58 лет, обратилась в Федеральный центр нейрохирургии (г. Новосибирск) с жалобами на постоянную жгучую боль с пароксизмальным компонентом в левой половине лица и затылке, связанную с движениями головы, головную боль, сопровождающуюся тошнотой, онемение конечностей, неустойчивость, недержание мочи, нарушение проприоцептивной чувствительности в конечностях.

Из анамнеза известно, что в 2000 г. у пациентки была проведена вентрикулоцистерностомия по Торкильдсену по поводу окклюзионной гидроцефалии, развившейся после перенесенной нейроинфекции. В послеоперационном периоде больная отметила некоторое улучшение, однако, по данным контрольных нейровизуализационных исследований, желудочки мозга после операции не уменьшились.

Спустя несколько лет после операции у пациентки возникла жгучая боль в левой половине лица и затылочной области. Боли не были интенсивными, и пациентка не обращалась по этому поводу за медицинской помощью. В 2006 г. по данным магнитно-резонансной томографии (МРТ) шейного отдела позвоночника выявлена синингобулбия на уровне позвонка C₇ размерами 4 × 4 × 8 мм, что было интерпретировано радиологом как последствия острого нарушения спинномозгового кровообращения (рис. 1).

В 2013 г. у пациентки вновь усилились симптомы внутричерепной гипертензии, была выявлено нарушение функционирования шунта, в связи с чем выполнена эндоскопическая тривентрикулостомия, которая имела хороший клинический эффект. По данным контрольных нейровизуализационных исследований подтверждена стабилизация размеров желудочковой системы, нормальное функционирование вентрикулостомы (рис. 2).

Ухудшение наступило в январе 2018 г. При повороте головы у пациентки резко усилилась боль в зоне иннервации II и III ветвей левого тройничного нерва. Помимо жгучей боли, возникла пароксизмальная боль, интенсивность которой больная оценивала в 10 баллов по визуально-аналоговой шкале. В связи с усилением боли пациентка обратилась в Федеральный центр нейрохирургии (г. Новосибирск). Клиническая картина в виде преимущественно жгучей боли с пароксизмальным компонентом в зоне иннервации тройничного нерва расценена как тригеминальная нейропатическая боль.

При поступлении в стационар сознание ясное, наблюдается снижение глубокой чувствительности (более выраженное в руках), сенситивная атаксия. При исследовании глазного дна явных признаков внутричерепной гипертензии не выявлено.

Результат тар-теста был отрицательным: вместо улучшения у пациентки развилась клиническая картина ликворной гипотензии. По данным МРТ и компьютерной томографии головного мозга установлено, что признаки нарастания гидроцефалии отсутствовали, тривентрикулостома функционировала, дистальный конец шунта мигрировал в вещество спинного мозга, развилась синингобулбия на уровне позвонка C₇ (рис. 3). Признаков невровазкулярного конфликта тройничных нервов при МРТ не выявлено. С учетом клинко-рентгенологической картины принято решение об удалении вентрикулоцистернального шунта, который раздражал спинальное ядро тройничного нерва и вследствие этого рассматривался как причина развития нейропатической боли в области лица.

Оперативное вмешательство выполнено через разрез по старому послеоперационному рубцу. Выделили дренажную трубку (рис. 4а). Вентрикулярный конец трубки (на ощупь каменной плотности) удалили из полости

Рис. 1. Магнитно-резонансная томография краниовертебрального сочленения в режимах T1 (а) и T2 (б) от 2006 г. Сирингобульбическая киста на уровне позвонка C₁

Fig. 1. Magnetic resonance imaging of the craniovertebral junction, T1- (a) and T2-weighted (b) images from 2006. Syringomyelic cyst at the C₁ vertebra level

Рис. 2. Магнитно-резонансная томография головного мозга в режиме T2 от 2013 г.: а — аксиальный срез; б — сагиттальный срез

Fig. 2. T2-weighted magnetic resonance imaging of the brain from 2013: a — axial section; б — sagittal section

желудочка, после чего в рану начал поступать прозрачный ликвор. Отломок цистернального конца шунта длиной около 1 см в области краниовертебрального сочленения (рис. 4б) также удалили с использованием микрохирургической техники (рис. 4в). Рану послойно ушили.

В послеоперационном периоде интенсивность пароксизмальной лицевой боли снизилась до 4–5 баллов по ви-

зуально-аналоговой шкале. На 5-е сутки после операции пациентка выписана в удовлетворительном состоянии.

Катамнез к моменту написания статьи собран в течение 1 года 6 мес. Отмечена явная положительная динамика — отсутствие лицевой боли. При контрольном исследовании (рис. 5) визуализирована сирингобульбическая киста. Слабые проявления гидроцефалии и поражения спинного мозга в виде онемения конечностей,

Рис. 3. Мультиспиральная компьютерная томография от 2018 г.: а — аксиальный срез. Цистернальный конец шунта проникает в вещество спинного мозга на уровне позвонка C_7 ; б — 3D-реконструкция черепа. Положение шунта

Fig. 3. Spiral computed tomography from 2018: a — axial section. Cisternal end of the shunt penetrates the spinal matter at the C_7 vertebra level; б — 3D reconstruction of the skull. Shunt position

Рис. 4. Интраоперационные фотографии: а — вентрикулоцистернальный шунт выходит из трепанационного отверстия в чешуе затылочной кости; б — отломок цистернального конца шунта в области краниовертебрального сочленения; в — шунт удален, в области задних столбов спинного мозга видна сирингомиелическая киста размерами $4 \times 4 \times 8$ мм

Fig. 4. Intraoperative photos: a — ventriculo-cisternal shunt exits from the trephination orifice in the squama occipitalis; б — fragment of the cisternal shunt near the craniovertebral junction; в — the shunt is removed, syringomyelic cyst $4 \times 4 \times 8$ mm is visible near the posterior columns of the spinal cord

неустойчивости, недержания мочи сохранялись, однако ввиду компенсированного состояния пациентки, отрицательного результата тар-теста, отсутствия отрицательной динамики радиологической картины, наличия признаков функционирующей тривентрикулостомы от дальнейших вмешательств и ликворошунтирующих операций решено воздержаться.

ОБСУЖДЕНИЕ

Развитие лицевой боли может наблюдаться при тех или иных патологических процессах в области краниовертебрального сочленения. Так, К.Д. Than и соавт. (2010) представили клинический случай двусторонней тригеминальной невралгии у 56-летней женщины с аномалией Киари I типа. Путем субокципитальной декомпрессии и вентрикулоперитонеального шунтирования лицевая боль была купирована [3].

В Великобритании в 2013 г. был зарегистрирован случай развития лицевой боли у 10-летней пациентки с гиперплазией затылочных мышечков. Утолщение мышечков привело к компрессии верхнешейного отдела спинного мозга в области краниовертебрального сочленения и формированию сирингомиелии на шейном и грудном уровне. После декомпрессии области краниовертебрального сочленения симптоматика полностью исчезла [4].

В 2016 г. описан случай развития лицевой боли вследствие появления посттравматической сирингобульбической кисты в области краниовертебрального сочленения с компрессией чувствительного ядра тройничного нерва [5]. N.E. Anderson и соавт. (1985), исследовавшие естественное течение сирингомиелии у 44 пациентов, также подчеркивают, что сирингомиелия в области краниовертебрального сочленения

Рис. 5. Магнитно-резонансная томография шейного отдела позвоночника через 2 мес после выписки. Сирингобульбическая киста без динамики
Fig. 5. Magnetic resonance imaging of the cervical spine 2 months after discharge. No changes in syringomyelic cyst

может вызывать лицевую боль, а также онемение и боль в области шеи и в руках [6].

В научной литературе отсутствуют сообщения о возникновении лицевой боли при миграции вентрикулоцистернального шунта, установленного в ходе операции Торкильдсена. В описанном нами случае была выявлена взаимосвязь между появлением лицевой боли и выполненной почти 18 лет назад ликворошунтирующей операцией.

Большое значение при постановке диагноза в случае боли в области лица имеют тщательный сбор анамнеза и оценка результатов нейровизуализационных исследований. Обращает на себя внимание тот факт, что контрольное исследование через 1 год после установки шунта по Торкильдсену не выявило уменьшения желудочков мозга, что свидетельствует о неэффектив-

ности шунтирования. С учетом того, что сирингомиелическая киста выявлена при МРТ уже в 2006 г., вероятнее всего, цистернальный конец шунта внедрился в спинной мозг значительно раньше. Клиническая картина, включающая лицевую боль и нарушение проприоцепции, соответствует топическому диагнозу поражения задних столбов спинного мозга на уровне позвонка C_1 — в этой области проходят афферентные пути глубокой чувствительности и залегает спинальное чувствительное ядро тройничного нерва. Как известно из анамнеза, лицевая боль невысокой интенсивности беспокоила пациентку много лет, а ухудшение произошло внезапно — скорее всего, это может объясняться переломом цистернального конца шунта и дополнительной его миграцией; данное предположение основано на интраоперационной картине. Удаление части шунта, травмирующей спинной мозг, принесло облегчение, что подтверждает взаимосвязь между миграцией инородного тела и лицевой болью.

Процедура вентрикулоцистерностомии по Торкильдсену была предложена в 30-е годы XX в. [1]. К настоящему моменту накоплен значительный опыт ее применения. Большинство авторов подчеркивают, что осложнения при данном типе шунтирования встречаются относительно редко [9]. Помимо типичных для всех ликворошунтирующих вмешательств осложнений, таких как инфекции и несостоятельность шунтирующей системы, в научной литературе описаны также осложнения, специфичные для операции Торкильдсена: миелопатия и тетрапарез вследствие установки шунта вблизи спинного мозга. Известен и случай летального исхода вследствие повреждения спинного мозга катетером [10]. В 1985 г. были описаны 2 случая отторжения инородного тела (развился асептический менингит и локальное воспаление вокруг шунта) [11].

Необходимо помнить, что причиной развития лицевой боли у пациентов с шунтом, установленным по методу Торкильдсена, может быть миграция шунта в вещество спинного мозга на уровне шейного отдела.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

В статье представлен клинический случай успешного хирургического лечения лицевой боли, развившейся как осложнение операции Торкильдсена. Данное наблюдение интересно прежде всего необычной причиной боли, а именно редко встречающимся в наши дни шунтом, установленным по методу Торкильдсена. Будучи инородным телом, данный шунт может мигрировать, что вызывает различную неврологическую симптоматику, в том числе лицевую боль.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Torkildsen A. A new palliative operation in cases of inoperable occlusion of the Sylvian aqueduct; a preliminary report. *Forh Norske Med. Selsk.*, 1938. Pp. 102–108. DOI: 10.1111/j.1600-0447.1939.tb06636.x.
2. Zinn P.O., Bozinov O., Burkhardt J.K. et al. Failure of a Torkildsen shunt after functioning for 50 years. *J Neurosurg* 2010;112(4):796–9. DOI: 10.3171/2009.7.JNS09729.
3. Than K.D., Sharifpour M., Wang A.C. et al. Chiari I malformation manifesting as bilateral trigeminal neuralgia: case report and review of the literature. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2011;82(9):1058–9. DOI: 10.1136/jnnp.2009.196121.
4. Walkden J.S., Cowie R.A., Thorne J.A. Occipitocondylar hyperplasia and syringomyelia presenting with facial pain. *J Neurosurg Pediatr* 2013;12(6):655–9. DOI: 10.3171/2013.8.PEDS13288.
5. Randhawa P.A., Cooke L., Hill M.D. Headache, atypical facial pain, and a syrinx. *Can J Neurol Sci* 2016;43(3):452–3. DOI: 10.1017/cjn.2015.348.
6. Anderson N.E., Willoughby E.W., Wrightson P. The natural history and the influence of surgical treatment in syringomyelia. *Acta Neurol Scand* 1985;71(6):472–9. DOI: 10.1111/j.1600-0404.1985.tb03230.x.
7. Torkildsen A. Ventriculo-cisternostomy. A post-operative study. *Acta Chir Scand* 1941;85:254–60.
8. Fincher E.F., Strewler G.J., Swanson H.S. The Torkildsen procedure; a report of 19 cases. *J Neurosurg* 1948;5(3):213–29. DOI: 10.3171/jns.1948.5.3.0213.
9. Morota N., Ihara S., Araki T. Torkildsen shunt: re-evaluation of the historical procedure. *Childs Nerv Syst* 2010;26(12):1705–10. DOI: 10.1007/s00381-010-1182-2.
10. Ehni G., Moiel R.H., Bragg T.G. Torkildsen's ventriculocisternostomy: some complications and their prevention. *Clin Neurol Neurosurg* 1976;79(2):119–32. DOI: 10.1016/0303-8467(76)90004-4.
11. Rossitch E. Jr, Friedman A.H., Bullard D.E. Foreign body reaction to rubber Torkildsen catheters: a report of two cases. *Neurosurgery* 1985;17(5):838–42. DOI: 10.1227/00006123-198511000-00021.

Вклад авторов

А.В. Бервицкий: участие в операции, наблюдение пациентки в периоперационном и отдаленном послеоперационном периоде, обзор публикаций по теме статьи, написание текста статьи;

Г.И. Мойсак: амбулаторное консультирование пациентки, участие в выборе лечебной тактики, анализ полученных результатов, научное редактирование текста статьи;

А.Б. Дмитриев: проведение операции, анализ полученных результатов;

Д.А. Рзаев: научное консультирование, научное редактирование текста статьи.

Authors' contributions

A.V. Bervitskiy: assisting during surgery, supervision of the patient after surgery, reviewing of publications on the article's theme, article writing;

G.I. Moysak: outpatient consultation, participation in the choice of treatment tactics, analysis of the results, scientific editing of the article;

A.B. Dmitriev: performing the operation, analysis of the results;

D.A. Rzaev: scientific advice, scientific editing of the article.

ORCID авторов/ORCID of authors

А.В. Бервицкий/A.V. Bervitskiy: <https://orcid.org/0000-0001-9034-2212>

Г.И. Мойсак/G.I. Moysak: <https://orcid.org/0000-0002-3885-3004>

Д.А. Рзаев/D.A. Rzaev: <https://orcid.org/0000-0002-1209-8960>

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Финансирование. Исследование проведено без спонсорской поддержки.

Financing. The study was performed without external funding.

Информированное согласие. Пациент подписал информированное согласие на публикацию своих данных.

Informed consent. The patient gave written informed consent to the publication of his data.

Статья поступила: 28.05.2019. **Принята к публикации:** 16.10.2019.

Article submitted: 28.05.2019. **Accepted for publication:** 16.10.2019.