

КАПИЛЛЯРНАЯ ГЕАНГИОМА ЭПИДУРАЛЬНОГО ПРОСТРАНСТВА ПОЗВОНОЧНОГО КАНАЛА. ОПИСАНИЕ КЛИНИЧЕСКОГО НАБЛЮДЕНИЯ И ОБЗОР ЛИТЕРАТУРЫ

Г.Ю. Евзиков¹, А.В. Фарафонов¹, Л.В. Шишкина², М.В. Рыжова²

¹ Клиника нервных болезней им. А.Я. Кожевникова УКБ №3 Первого МГМУ им. И.М. Сеченова,

² НИИ нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко, Москва

В статье представлен разбор клинического наблюдения и лечения пациента с капиллярной гемангиомой грудного отдела позвоночника, которая не поражала костные структуры и располагалась изолированно в эпидуральном пространстве позвоночного канала. Компрессия спинного мозга проявлялась преимущественно поражением его задних столбов. Данное наблюдение является первым описанием данной патологии в русскоязычной литературе и представляет интерес в связи с исключительной редкостью подобного расположения гемангиом.

Ключевые слова: гемангиома, кавернозная мальформация, кавернома

This article presents the clinical case of surgical treatment of patient with thoracic capillary hemangioma, which was localized only in epidural space without affecting of bone structures. The compression of spinal cord was predominately presented with signs of posterior columns damage. This clinical case is the first one in Russian literature and appeals for extreme rarity of such localization of hemangioma.

Key words: hemangioma, cavernous malformation, cavernoma

Вступление

Гемангиома позвоночника — сосудистое образование дисэмбриогенетического происхождения, поражающее преимущественно тела позвонков, характеризующееся обильной васкуляризацией, атрофией окружающей кости и длительным бессимптомным течением. Гистологическая классификация гемангиом делит их на: капиллярные, кавернозные, артериовенозные, венозные. Капиллярная гемангиома (КГ) относится к доброкачественным сосудистым гамартомам. Морфологически КГ состоит из множества мелких сосудов капиллярного типа. КГ встречаются преимущественно в коже, а также подкожно и внутрикостно [5]. При внутрикостном расположении гемангиомы поражают преимущественно тела позвонков, в редких случаях — кости черепа [12]. Клинически КГ могут проявляться в любом возрасте, но наиболее часто — на 4-м и 5-м десятилетиях жизни и встречаются чаще у женщин в соотношении 3:1 [9]. Эта патология хорошо известна спинальным нейрохирургам, вертебрологам и нейрорадиологам. Частота встречаемости гемангиом тел позвонков в популяции, по данным МР-исследований, составляет 10—12%. Большинство из этих образований развиваются бессимптомно. Клинические проявления характерны только для 0,9-1,2% образований тел позвонков. Типичным клиническим проявлением является болевой синдром. Клиническая картина в виде изолированного болевого синдрома встречается в 54%, в виде компрессии спинного мозга и его корешков в 46% наблюдений [7]. Изолированные гемангиомы эпидурального пространства встречаются крайне редко. В мировой литературе

имеется только несколько десятков отдельных клинических описаний эпидуральных гемангиом. Подобные образования называются «purely epidural hemangioma» — чистыми эпидуральными гемангиомами — и отличаются от эпидуральных узлов агрессивно растущих из тел позвонков тем, что костная ткань при них остается интактной, так как гамартома первично поражает перидуральное пространство позвоночного канала. Большинство описанных в мировой литературе наблюдений эпидуральных гемангиом являются кавернозными гемангиомами. Первое упоминание о капиллярной гемангиоме подобной локализации в англоязычной литературе встречается только в 1996 г. [5, 6]. В русскоязычной литературе чистая эпидуральная капиллярная гемангиома описывается впервые.

Клиническое наблюдение

Больной Б., 49 лет, поступил в нейрохирургическое отделение клиники нервных болезней А.Я. Кожевникова Первого МГМУ в марте 2013 г. При поступлении предъявлял жалобы на слабость, «скованность» в ногах, пошатывание при ходьбе, онемение нижней половины туловища и обеих ног.

Считает себя больным с декабря 2012 г., когда впервые стал отмечать шаткость походки. В последующем в связи с нарастанием вышеуказанных жалоб, в марте 2013 г. амбулаторно выполнил магнитно-резонансную томографию грудного отдела позвоночника, при которой выявлена экстрадуральная опухоль на уровне Th4-Th7 (рис. 1), что послужило поводом для госпитализации в нейрохирургическое отделение.

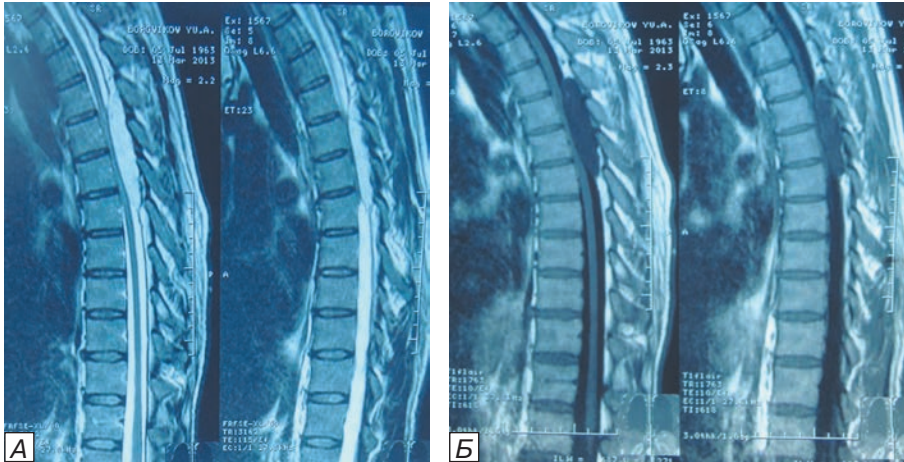


Рис. 1. МР-томограммы грудного отдела позвоночника в сагиттальной плоскости. А — T1- взвешенное изображение. В позвоночном канале экстрадурально на уровне тел Th4-Th7 в задних отделах визуализируется сигарообразное объемное образование, оттесняющее спинной мозг кпереди, имеющее гомогенный изоинтенсивный сигнал по сравнению со спинным мозгом; б — T2-взвешенное изображение. В позвоночном канале экстрадурально на уровне тел Th4-Th7 в задних отделах визуализируется сигарообразное объемное образование, оттесняющее спинной мозг кпереди, имеющее гомогенный гиперинтенсивный сигнал по сравнению со спинным мозгом.

Fig. 1. MRI of thoracic spine in sagittal view. A — T1 image. The cigar-like

homogenous isointense (comparing to spinal cord) mass lesion pushed the spinal cord anteriorly is seen in vertebral canal posteriorly at the level of Th4-Th7 vertebral bodies; б — T2-image. The cigar-like homogenous hyperdense (comparing to spinal cord) mass lesion pushed the spinal cord anteriorly is seen in vertebral canal posteriorly at the level of Th4-Th7 vertebral bodies.

При поступлении в неврологическом статусе у пациента выявлен нижний парапарез до 4 баллов, мышечный тонус в ногах не изменен. Коленные и ахилловы рефлексы были повышены с обеих сторон, D=S, зоны их расширены. Вызывались патологические рефлексы Бабинского и Россолимо с двух сторон. Неустойчив в пробе Ромберга. Неустойчивость грубо нарастает при закрывании глаз. Походка нарушена по типу сенситивной атаксии. Нарушение чувствительности по проводниковому типу с уровня T6 сегмента. Функции тазовых органов не нарушены.

МРТ грудного отдела позвоночника (описание исследования выполненного на амбулаторном этапе): экстрадурально на уровне тел Th4-Th7 в задних отделах визуализируется объемное образование, оттесняющее спинной мозг кпереди, имеющее гомогенный изоинтенсивный сигнал по сравнению со спинным мозгом на T1-взвешенных изображениях (T1ВИ) и гомогенный гиперинтенсивный сигнал на T2ВИ. ЭКГ, рентгенография грудной клетки без патологии. Контрастирование в ходе исследования не проводили.

Общий анализ крови и мочи, биохимический анализ крови и коагулограмма — без патологических изменений. Анализ крови на ВИЧ, сифилис, гепатиты В и С отрицательный.

Операция — удаление патологического объемного образования позвоночного канала, расположенного на уровне позвонков Th4-Th7 была выполнена 28.03.2013. На операции после произведенной ламинэктомии Th5-Th6, нижней аркотомии Th4 и верхней аркотомии Th7 в эпидуральном пространстве на задней поверхности дурального мешка обнаружено объемное образование сигарообразной формы темно-вишневого цвета, мягкой консистенции, которое расценено как опухоль. Опухоль занимала почти весь просвет позвоночного канала и грубо компримировала дуральный мешок. Грубых спаек между опухолью и дуральными структурами не выявлено. Питание образования осуществлялось сосудами эпидуральной

клетчатки. Место исходного роста образования интраоперационно определить было невозможно. Костные структуры позвоночника не изменены. Питающие и дренирующие сосуды образования коагулированы. Образование удалено единым блоком. Клинически значимого кровотечения в ходе удаления не отмечалось. Размер образования после удаления составил 6 x 1,5 x 1,5 см.

Патоморфологическое исследование удаленного материала. После удаления ткань была фиксирована в формалине и залита в парафиновые блоки, с которых были изготовлены срезы, окрашенные гематоксилином и эозином. Гистологически образование построено из множества мелких сосудов капиллярного типа (рис. 2). Иммуногистохимическое исследование выявило положительную экспрессию эндотелиальных маркеров CD31 и CD34 в эндотелии сосудов, положительную экспрессию гладкомышечного актина. Экспрессии десмина в клетках не выявлено. Индекс мечения пролифе-

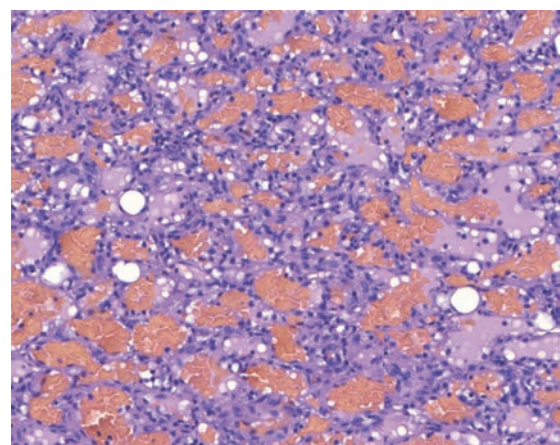


Рис. 2. Гистологический препарат удаленного объемного образования. Капиллярная гемангиома. Окраска гематоксилином и эозином, увеличение X 20.

Fig. 2. The histological examination of removed mass lesion. Capillary hemangioma. Hematoxylin and eosin stain, zoom X 20.

ративного маркера Ki-67 низкий. Гистологический диагноз — капиллярная гемангиома.

В послеоперационном периоде у больного отмечен регресс нижней парапареза, походка улучшилась. Рана зажила первичным натяжением. Выписан на 14-е сутки после операции.

Обсуждение

Гистологическая принадлежность гемангиом и даже само название патологии остается предметом дискуссии. Для обозначения этой патологии до настоящего времени используют различные названия: кавернозная мальформация, кавернозная ангиома, кавернома, гемангиома. Морфогенез чистых эпидуральных гемангиом неизвестен. Это крайне редкая патология. В отличие от гемангиом тел позвонков, в литературе описано только несколько десятков чистых эпидуральных гемангиом. При этом чистые капиллярные гемангиомы эпидурального пространства обнаружены нами только в двух работах [5, 6].

Методом выбора в диагностике гемангиом позвоночника является МРТ-исследование. Типичными МР-характеристиками гемангиом тел позвонков является гиперинтенсивный сигнал на T1- и T2ВИ, что позволяет отличать их от метастатического поражения тел позвонков, проявляющегося гипоинтенсивным сигналом на T1ВИ и гиперинтенсивным сигналом на T2ВИ. Интенсивность сигнала на T1ВИ от гемангиом большинство авторов связывают с наличием некоторого количества жировых клеток в их ткани. [15]. Гемангиомы с типичными МР-характеристиками в абсолютном большинстве случаев не склонны к росту и не вызывают сдавления спинного мозга. Как уже отмечалось, агрессивное течение гемангиом, при котором может возникать сдавление структур позвоночного канала, наблюдается крайне редко (не более 1% наблюдений). Причиной сдавления спинного мозга при агрессивной гемангиоме могут быть патологическое увеличение размера тела позвонка, компрессионный перелом тела позвонка и эпидуральная гематома. При гемангиомах позвонков с агрессивным течением МР-сигнал от образований на T1ВИ

может быть изоинтенсивным [1, 3, 13, 14]. Этот факт до настоящего времени не имеет четких объяснений. Чистые эпидуральные гемангиомы также имеют гомогенный изоинтенсивный или даже гипоинтенсивный сигнал по отношению к спинному мозгу на T1ВИ. На T2ВИ гиперинтенсивный сигнал окружен ободом гипоинтенсивного, что позволяет предположить эпидуральное расположение образования. Таким образом, МР-характеристики чистых эпидуральных гемангиом близки к агрессивно растущим гемангиомам позвонков. Несмотря на близость МР-характеристик агрессивных гемангиом тел позвонков и чистых эпидуральных гемангиом, в литературе не описывается агрессивное течение чистых эпидуральных образований. Своеобразие МР-характеристики эпидуральных гемангиом связывают с гистологической картиной, при которой в ткани чистых эпидуральных гемангиом не выявляют жирового компонента или гемосидерина. При контрастном усилении в случаях чистых эпидуральных гемангиом отмечают однородное гомогенное накопление контрастного вещества в ткани образования. К особенностям чистых эпидуральных гемангиом также следует отнести тот факт, что в 93% наблюдений они располагаются кзади от дурального мешка, т.е. вообще не имеют контакта с телом позвонка [4].

Клинические проявления чистой эпидуральной гемангиомы не имеют специфических черт и зависят от её локализации, распространения и степени компрессии спинного мозга и/или его корешков [8, 10, 16]. Симптомы заболевания принципиально не отличаются от других типов экстрадуральных компрессий. Учитывая крайнюю редкость чистых эпидуральных гемангиом, установить этот диагноз до вмешательства и гистологического исследования на основании клинической и МР-картины крайне сложно. Дифференциальный диагноз по данным МР-исследования проводят с синовиальными кистами, лимфомами, липомами (ангиолипомами) эпидурального пространства, эпидуральными гематомами [8, 11]. Особого внимания заслуживает сходство МР-картины приводимой нами эпидуральной капиллярной гемангиомы с экстрадуральной арахноидальной кистой тип Ia при бесконтрастном МР-исследовании (рис. 3). [2].



Рис. 3. МРТ нижнегрудного — поясничного отдела позвоночника. T2-взвешенное изображение в сагиттальной плоскости. В позвоночном канале экстрадурально, кзади от дурального мешка на уровне ThXI-LII выявляется патологическое объемное образование сигарообразной формы (на операции пациента X. с экстрадуральной арахноидальной ликворной кистой типа Ia). МР-сигнал от содержимого образования идентичен сигналу от ЦСЖ. В проекции тела позвонка ThXI видно вентральное распространение кисты с узурацией задней поверхности тела этого позвонка (собственное наблюдение).
Fig. 3. MRI of lower thoracic and lumbar spine. T2 image in sagittal view. The extradural pathological cigar-like mass lesion located posteriorly to the dural sac is seen in vertebral canal at the level of ThXI-LII vertebrae (on operation of patient X. with extradural arachnoid cyst type Ia). MRI-signal of mass lesion is identical to signal from cerebrospinal fluid (CSF). The ventral localization of the cyst with erosion of posterior surface of vertebral body is seen at the projection of ThXI vertebra (own clinical case).

По данным литературы, во всех наблюдениях при чистых эпидуральных гемангиомах образования удалялись радикально, без серьезных технических сложностей. Интенсивного кровотечения в ходе удаления эпидуральных гемангиом не отмечено ни в одном из приведенных в литературе наблюдений. Не было его и у данного пациента. Таким образом, анализируя данные литературы, можно заключить, что, в отличие от агрессивных гемангиом тел позвонков, риск клинически значимого кровотечения при удалении чистых эпидуральных гемангиом не высок. Прогноз клинического течения при эпидуральных гемангиомах благоприятен. В подавляющем большинстве приведенных в литературе наблюдений описан регресс неврологических нарушений после удаления образований [4].

Заключение

В редких случаях гемангиомы позвоночника могут находиться в эпидуральном пространстве и не сопровождаться поражением костной ткани позвонка. Большинство чистых эпидуральных гемангиом — кавернозные гемангиомы. В единичных случаях описываются капиллярные гемангиомы. Абсолютное большинство чистых эпидуральных гемангиом расположены кзади от дурального мешка и вообще не контактируют с телом позвонка. Обращает на себя внимание тот факт, что при общности гистологической структуры эпидурально расположенных гемангиом и гемангиом тел позвонков, они имеют разные МР-характеристики. Большинство гемангиом тел позвонков имеют гиперинтенсивный сигнал на Т1ВИ, в то время как эпидуральные гемангиомы имеют преимущественно изоинтенсивный либо гипоинтенсивный сигнал. Хирургическое вмешательство является методом выбора в лечении чистых эпидуральных гемангиом. Несмотря на сосудистую природу образования, в литературе не описаны случаи тяжелых кровотечений при удалении чистых эпидуральных гемангиом. Тотальная резекция образования сопровождается редкими послеоперационными осложнениями и в большинстве наблюдений приводит к регрессу неврологических расстройств.

СВЕДЕНИЯ ОБ АВТОРАХ:

Евзиков Григорий Юльевич — д.м.н., профессор кафедры нервных болезней Первого МГМУ им. И.М. Сеченова.

e-mail: mmaevzikov@mail.ru

119021 Москва. Ул. Россолимо д. 11, стр. 1.

Фарафонов Александр Валентинович — врач-нейрохирург клиники нервных болезней УКБ№3 Первого МГМУ им. И.М. Сеченова.

e-mail: alfaros.ns@gmail.com

119021 Москва. Ул. Россолимо д. 11, стр. 1.

Шишкина Людмила Валентиновна — к.м.н., зав. отделением патологической анатомии Федерального государственного бюджетного учреждения «Научно-исследовательский институт нейрохирургии имени академика Н.Н. Бурденко»
125047 Москва. Ул. 4-ая Тверская-Ямская д. 16

e-mail — Lshishkina@nsi.ru

Рыжова Марина Владимировна — к.м.н., с.н.с. отделения патологической анатомии ФГБУ «Научно-исследовательский институт нейрохирургии имени академика Н.Н. Бурденко»

125047 Москва. Ул. 4-ая Тверская-Ямская д. 16

e-mail: Mrizhova@nsi.ru

ЛИТЕРАТУРА

1. Зозуля Ю.А., Слынько Е.И. Спинальные сосудистые опухоли и мальформации., Киев: ЭксОб, 2000, — с.190-244
2. Евзиков Г.Ю., Фарафонов А.В. Экстрадуральная арахноидальная киста. Неврологический журнал (6) 2011, Том 16, с.17-19.
3. Москаленко М.А., Прохорова Л.М., Евтушенко С.К., Савченко Е.А. Случай гемангиомы позвонков со стенозированием позвоночного канала у девочки 15 лет. Международный неврологический журнал 4(14) 2007.
4. Aoyagi N., Kojima K., Kasai H.: Review of spinal epidural cavernous hemangioma // Neurol Med Chir (Tokyo) — 2003. 43, P. 471-476.
5. Badinand B., Morel C., Kopp N., Tran Min V., Cotton F.: Dumbbell-Shaped Epidural Capillary Hemangioma // AJNR Am J Neuroradiol — 2003. 24, P 190—192.
6. Gupta S., Kumar S., Banerji D., Pandey R., Gujral R.: Magnetic resonance imaging features of an epidural spinal hemangioma. // Australas Radiol — 1996. 40, P 342—344.
7. Hadjipavlou A., Tosounidis T., Gaitanis I., Kakavelakis K., Katonis P.: Balloon kyphoplasty as a single or as an adjunct procedure for the management of symptomatic vertebral haemangiomas. // J Bone Joint Surg Br. — 2007. Apr 89(4), P 495-502.
8. Hatiboglu M.A., Iplikcioglu A.C., Ozcan D.: Epidural spinal cavernous hemangioma. // Neurol Med Chir (Tokyo) — 2006. 46, P 455-458.
9. Heckl S., Aschoff A., Kunze S.: Cavernomas of the skull: review of the literature 1975-2000. // Neurosurg Rev. — 2002. 25, P 56—62.
10. Kim K.H., Song S. W., Lee S. E., Lee S. H.: Spinal Epidural Arteriovenous Hemangioma Mimicking Lumbar Disc Herniation. // J Korean neurosurg — 2012. soc 52, P 407-409.
11. Lee E.Y., Cho S.H., Hong W., Chung J.H., Kim H., Chang J.Y., Choi S., Yeom H.S.: Spinal Epidural Hemangiomas: Various Types of MR Imaging Features with Histopathologic Correlation. // AJNR — 2007. 28.
12. Park B., Hwang E., Kim C. H.: Primary Intraosseous Hemangioma in the Frontal Bone. // Arch Plast Surg. — 2013. 40(3). P 283—285.
13. Ross J.S.: Hemangioma in Spine. // 1st Edn., Amirsys, Salt Lake City — 2004., pp: 14-16.
14. Ross J.S., Masaryk T.J., Modic M.T., Carter J.R., Mapstone T., Dengel F.H.: Vertebral hemangioma imaging. // Radiology — 1987. 165, P 165-169.
15. Stephen F. Quinn, M.D.: Vertebral Hemangioma. // MRI Web Clinic — November 2006.
16. Uchida K., Yayama T., Nakajima H., Hirai T., Kobayashi S., Chen K., Guerrero A. R., Baba H.: Microsurgical resection of cavernous haemangioma around the thoracic neuroforamen: a case report. // Journal of Orthopaedic Surgery — 2010. 18(3). P 370-373.