

O P I S Y P R Z Y P A D K Ó W C A S E R E P O R T S

©Borgis

*Bartłomiej Tyzo¹, Wojciech Czyżewski², Dariusz Szczepanek¹, Tomasz Trojanowski¹

Torbiel pajęczynówki jako przyczyna płynotoku nosowego u pacjentki z ciężką wadą zastawkową serca

Arachnoid cyst as a cause of rhinorrhea in a patient with a severe heart valve defect

¹Katedra i Klinika Neurochirurgii i Neurochirurgii Dziecięcej, Uniwersytet Medyczny w Lublinie
Kierownik Kliniki: prof. dr hab. med. Tomasz Trojanowski²Zakład Dydaktyki i Symulacji Medycznej, Uniwersytet Medyczny w Lublinie
Kierownik Zakładu: dr hab. med. Kamil Torres**Słowa kluczowe**

płynotok nosowy, torbiel pajęczynówki, stenoza aortalna

Keywords

rhinorrhea, arachnoid cyst, aortic stenosis

**Konflikt interesów
Conflict of interest**Brak konfliktu interesów
None**Adres/address:***Bartłomiej Tyzo
Katedra i Klinika Neurochirurgii
i Neurochirurgii Dziecięcej
Uniwersytet Medyczny w Lublinie
ul. Jaczewskiego 8, 20-954 Lublin
tel. +48 502-502-995
bartektyzo@wp.pl**Streszczenie**

Zgodnie z klasyfikacją płynotoków zaproponowaną przez Ommaya wśród nieurazowych płynotoków można wyróżnić: wysokociśnieniowe – związane z guzami wewnątrzczaszkowymi, wodogłowiem czy łagodnym nadciśnieniem wewnątrzczaszkowym, oraz normotensyjne – związane z wadami wrodzonymi czaszki, ogniskowym zanikiem struktur podstawy czaszki lub erozją kostną w przebiegu zapalenia czy martwicy. Termin „płynotok spontaniczny” odnosi się zazwyczaj do wycieku płynu mózgowo-rdzeniowego nieokazanego z urazem głowy (w tym operacyjnym), malformacją czaszki, guzem czy radioterapią. W zależności od źródła częstość płynotoków nieurazowych szacuje się na 6 do 23% wszystkich przypadków płynotoków.

Prezentujemy przypadek 62-letniej chorej przyjętej do Kliniki Neurochirurgii i Neurochirurgii Dziecięcej w Lublinie z powodu spontanicznego wycieku płynu mózgowo-rdzeniowego poprzez lewy przewód nosowy z rozpoznaną w badaniu MR głowy torbielą pajęczynówki okolicy nadsiodłowej, wpuklającą się do siodełka tureckiego i zatoki klinowej. Zaopatrzenie rzadko spotykanego rodzaju płynotoku nosowego u chorej z ciężką stenozą aortalną, nadciśnieniem płucnym i innymi obciążeniami internistycznymi stanowiło duże wyzwanie neurochirurgiczne pod względem zastosowanej opieki okołoperacyjnej, diagnostyki płynotoku oraz techniki operacyjnej.

S u m m a r y

Accordingly to the classification of rhinorrhea presented by Ommaya, regarding non-traumatic rhinorrhea, you can differentiate: high pressure leaks – connected with intracranial tumors with hydrocephalus or intracranial hypertension and normal pressure leaks – tied with congenital cranial defects, focal cranial base atrophy or osseus erosion due to inflammation or necrosis. The term “spontaneous rhinorrhea” usually refers to cerebro-spinal fluid (CSF) leakage not associated with head trauma (also operational trauma), skull malformation, tumor or radiotherapy. Depending on the source, the frequency of non-traumatic rhinorrhea ranges from 6 to 23% of all rhinorrhea cases.

We present a case of a 62-year old female patient admitted to the Department of Neurosurgery and Paediatric Neurosurgery, Medical University in Lublin due to spontaneous CSF leak through the left nasal cavity, after which MR testing showed a suprasellar arachnoid cyst protruding to the sella turcica and sphenoid sinus. Management of this rarely seen condition in a patient with aortic stenosis, pulmonary hypertension and other serious comorbidities created a large neurosurgical challenge in terms of peri-operative care, rhinorrhea diagnostics as well as operational techniques.

WSTĘP

Spontaniczny płynotok nosowy jest rzadką jednostką chorobową, bywa mylony z alergicznym nieżytem nosa lub innymi stanami związanymi z wyciekaniem

wydzieliny przez nozdrza. Pierwszy wyciek płynu mózgowo-rdzeniowego przez nos zaobserwowany został i opisany już 200 lat p.n.e. przez Galena i aż do XIX wieku pozostawał uznawany za stan fizjologiczny. Dopiero

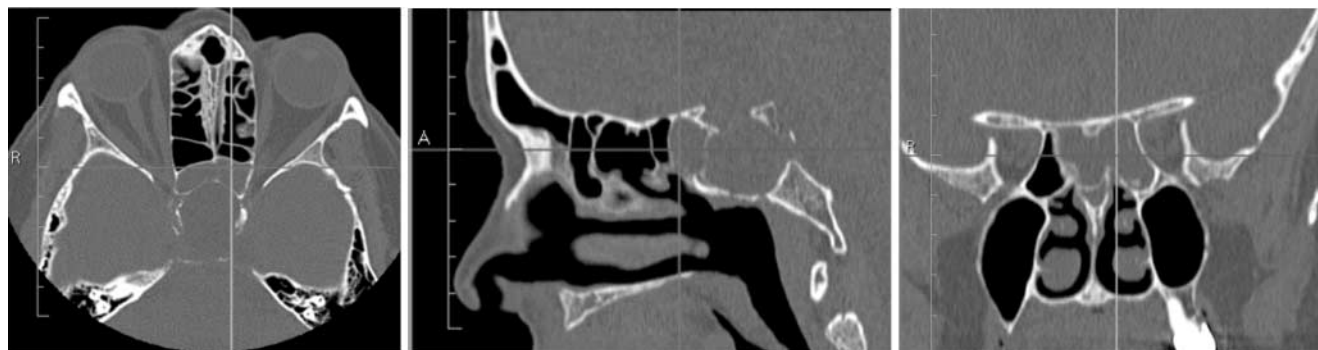
badania brytyjskiego chirurga i profesora laryngologii sir St. Clair Thomsona doprowadziły do wyodrębnienia płynotoku jako oddzielnej jednostki chorobowej. W 1968 roku Ommaya wspólnie z innymi autorami podzielili płynotoki nieurazowe na wysokociśnieniowe oraz normotensyjne (1). Pojawienie się „spontanicznego” płynotoku nosowego (2-5) może być związane m.in. z obecnością zespołu pustego siodła czy chorobami przebiegającymi z podwyższonym ciśnieniem wewnątrzczaszkowym, jak wodogłowie czy idiopatyczne nadciśnienie wewnątrzczaszkowe (łac. *pseudotumor cerebri*) (6, 7). Płynotoki nieurazowe stanowią około 6-23% wszystkich płynotoków (8, 9).

Torbiele pajęczynówki są to przestrzenie wypełnione płynem mózgowo-rdzeniowym występujące w obrębie pajęczynówki, mogące komunikować się z przestrzenią podpajęczynówkową. Ich najczęstszą lokalizacją są śródkolwy dół czaszki, gdzie występują jako torbiele szczeliny bocznej mózgu, oraz tylna jama czaszki, gdzie umiejscawiają się w kącie mostowo-mózdzkowym, okolicy robaka mózdzku czy okolicy wzgórków blaszki pokrywy. W następnej kolejności co do częstości zajmowania jest okolica nadsiodłowa (jak w prezentowanym przypadku). W większości przypadków torbiele pajęczynówki to zmiany asymptomatyczne, stanowiące przypadkowe znalezisko, rzadko osiągające odpowiednio duże rozmiary (tzw. torbiele ekspansywne). U niektórych pacjentów mogą przyczynić się do wystąpienia bólów głowy, napadów padaczkowych, wodogłowie czy niezwykle rzadko – płynotoku. Dotychczas opisano nieliczne torbiele pajęczynówki, które wywierając w sposób pulsacyjny ciśnienie hydrostatyczne na podstawie czaszki w długim odstępie czasu, doprowadziły do erozji kostnej w okolicy spneumatyzowanej i wpuklając się do przestrzeni powietrznych kości skroniowej lub zatok przynosowych, wytworzyły możliwość powstania wycieku płynu mózgowo-rdzeniowego poza jamę czaszki. Blaszką sitową, kanał czaszkowo-gardłowy, siodełko tureckie oraz chrząstkozrost klinowo-potyliczny są wymieniane tradycyjnie jako miejsca predysponowane do wystąpienia płynotoku nosowego (3). Okolica ziarnistości pajęczynówki w pobliżu kości sitowej oraz zatoki klinowej może być miejscem wytworzenia przecieku kostno-oponowego.

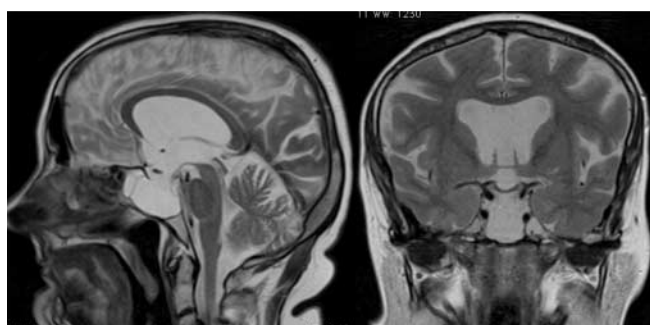
OPIS PRZYPADKU

Pacjentka 62-letnia znacząco obciążona kardiologicznie (niewydolność krążenia, ciężka stenoza aortalna z nadciśnieniem płucnym, nadciśnienie tętnicze, blok lewej odnogi pęczka Hisa, przewlekła choroba nerek) została przyjęta do leczenia operacyjnego do Kliniki Neurochirurgii i Neurochirurgii Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego w Lublinie z potwierdzonym laboratoryjnie i klinicznie obfitym wyciekaniem płynu mózgowo-rdzeniowego przez lewy przewód nosowy oraz do gardła. Zabieg podczas poprzedniej hospitalizacji w klinice odroczone po konsultacjach kardiologicznej i kardiochirurgicznej z powodu wysokiego ryzyka

okołooperacyjnego związanego głównie z ciężką stenozą aortalną. Włączono szerokospektralną profilaktyczną antybiotykoterapię doustną. Przed planowaną operacją przeprowadzono zabieg paliatywny plastyki balonowej zastawki aortalnej i stwierdzono w badaniu echokardiograficznym poprawę gradientu przezastawkowego z 79 do 35 mmHg. Chora odczuwała poprawę ogólnej wydolności po zastosowanym leczeniu. U pacjentki nie stwierdzano objawów ogólnoustrojowych infekcji oraz objawów oponowych, w ocenie neurologicznej nie stwierdzono objawów ogniskowych uszkodzenia ośrodkowego układu nerwowego. Chora skarżyła się na bóle głowy nasilające się w pozycji wertykalnej, która sprzyjała nasileniu płynotoku. W badaniach obrazowych głowy wykonanych w cienkich warstwach (MR, TK, w tym w pozycji na brzuchu) uwidoczniono torbiel pajęczynówki wypełniającą siodło, zatokę klinową (częściowo puste siodło) (ryc. 1 i 2), wpuklającą się i drenującą do tylnego sitowia po stronie lewej. Torbiel powodując erozję struktur kostnych, znacznie poszerzyła siodło, ściętniczając jego ścianę oraz doprowadzając do wytworzenia jej odcinkowego ubytku. Przedoperacyjnie nie było możliwe wykonanie badania TK głowy po podaniu kontrastu drogą nakłucia łędźwiowego do przestrzeni podpajęczynówkowej, ponieważ pomimo kilku prób, nie uzyskano wypływu płynu mózgowo-rdzeniowego (najprawdopodobniej przez ciągły intensywny płynotok nosowy). Z tego powodu lokalizując potencjalne miejsce płynotoku, oparto się na badaniu MR głowy w obrazach T2-zależnych z supresją tłuszczu w ułożeniu pacjentki na brzuchu oraz na badaniu cienkowarstwowym w przekrojach wieńcowych TK głowy. Zdecydowano o wykonaniu mikrochirurgicznej plastyki podstawy czaszki okolicy zatoki klinowej z dostępu transsfenoidalnego. Po zniesieniu przednio-dolnej ściany poszerzonej zatoki klinowej uwidoczniono wpuklającą się torbiel pajęczynówkową do światła zatoki i wykonano plastykę ściany zatoki w okolicy lewego jej otworu, skąd wydobywał się płyn mózgowo-rdzeniowy przy manewrze odwarstwienia torbieli od ściany zatoki. Wykorzystano klej tkankowy oraz matrycę kolagenową zawierającą warstwę fibrynogenu z trombiną. Śródoperacyjnie uzyskano zatrzymanie płynotoku. Pomimo pomyślnego przebiegu operacji, po zabiegu chora wymagała intensywnego leczenia z powodu kardiogennej obrzęku płuc. Po uzyskaniu stabilizacji stanu ogólnego pacjentki początkowo nie obserwowano płynotoku nosowego, jednakże po kilku dniach pojawił się nawrotowy płynotok. Założono drenaż łędźwiowy, dzięki czemu uzyskano redukcję wypływu płynu, jednakże wdrożone postępowanie nie doprowadziło do jego całkowitego zatrzymania. Podjęto decyzję o konieczności reoperacji pomimo licznych obciążeń kardiologicznych i bardzo wysokiego ryzyka zabiegu w znieczuleniu ogólnym. Przez przedśionek jamy ustnej po torze natarcia po poprzednim zabiegu przezklinowym uzyskano dostęp do ubytku czaszki będącego



Ryc. 1. Badanie TK głowy w oknie kostnym przedoperacyjne w ułożeniu pacjentki na brzuchu (rekonstrukcja trójwymiarowa). Obecność płynu w siodle tureckim, częściowo w zatoce klinowej oraz tylnym sitowiu



Ryc. 2. Badanie MR głowy przedoperacyjne w obrazach T2-za-
leżnych. Widoczna torbiel pajęczynówki okolicy nadsiodłowej
powodująca zespół częściowo pustego siodła, wpuklająca się do
zatoki klinowej, torbiel przegrody przezroczystej

miejszem wycieku. Mikrochirurgicznie usunięto większą część kleju tkankowego z poprzedniej operacji, otworzono ścianę przednio-dolną zatoki oraz torbiel pajęczynówki, uzyskując wgląd do poszerzonej zatoki klinowej i okolicy lejka przysadki. Jednocześnie, w celu skrócenia operacji do minimum ze względu na obciążenia kardiologiczne, wypreparowano fragment powięzi szerokiej uda i mięśnia napinacza powięzi szerokiej. Wysłano zatokę klinową i częściowo siodełko matrycą z klejem do tkanek, wypełniono mięśniem i wyłożono powięzią, a następnie zalano klejem tkankowym. Materiały uszczelniające dodatkowo podparto o brzegi otwarcia kostnego zatoki klinowej opracowanym materiałem hydroksyapatytowym używanym do spondylodezy. Pooperacyjnie u chorej wystąpiły zatrzymanie krążenia w mechanizmie asystolii i kardiogeny obrzęk płuc. Przeprowadzono reanimację, włączono intensywne leczenie farmakologiczne i respiratoroterapię, obserwując stabilizację układu krążenia, a następnie stopniową poprawę stanu ogólnego. Uzyskano trwałe zatrzymanie płynotoku.

DYSKUSJA

Wśród płynotoków nosowych spontanicznych najczęstszą lokalizacją przetoki jest okolica blaszki sitowej kości sitowej (4, 10). Zatoką klinową stanowi drugą pod względem częstości, z nieco większą predylekcją płynotoków do jej ściany bocznej (11). W badaniach anatomicznych Hoopera przeprowadzonych na 276 połowach kości klinowych defekty kostne

stwierdzono w 9,8% bocznych ścian zatoki, najczęściej w miejscu odpowiadającym położeniu kanału czaszkowo-gardłowego (12). Istnieje koncepcja, że wymieniona lokalizacja płynotoku mogłaby powstawać wskutek obecności ziarnistości pajęczynówki (3). Pneumatyzacja dolno-bocznego zacyłka predysponuje do wystąpienia płynotoku, zatoka klinowa może rozciągać się aż do otworu okrągłego (5). Wycieki płynu mózgowo-rdzeniowego przez boczną ścianę zatoki klinowej są większe niż przez sitowie i pośrodkową część kości klinowej.

Prezentowany rzadki przypadek płynotoku nosowego wywołanego torbielą pajęczynówki wpuklającą się do siodła i zatoki klinowej stanowi interesujący przykład diagnostyki spontanicznego płynotoku z wykorzystaniem badania MR głowy w obrazach T2-za-
leżnych w pozycji na brzuchu (najlepiej w przekrojach wieńcowych) skojarzonego z badaniem TK głowy wysokiej rozdzielczości w sytuacji braku możliwości wykonania badania cysternografii-TK, która uważana jest za badanie z wyboru. Dokładna ocena badań obrazowych głowy w ułożeniu pacjenta na brzuchu wnosi dodatkowe informacje co do potencjalnego miejsca wycieku płynu mózgowo-rdzeniowego na podstawie czaszki, może wykluczyć niektóre defekty budowy podstawy czaszki jako źródła płynotoku w sytuacji wielomiejscowej nieprawidłowej budowy struktur kostnych. Morfologia rozkładu płynu wyciekającego do lewego przewodu nosowego pozwoliła u pacjentki na wykluczenie obecności przetoki płynowej na poziomie ściany siodła z wypełnieniem zatoki klinowej płynem i na wstępne rozpoznanie przedoperacyjne wpuklania się torbieli pajęczynówki do poszerzonej zatoki klinowej.

Pod kątem zastosowanej przy drugiej operacji przezklinowej techniki mikrochirurgicznej u prezentowanej pacjentki, interesujące jest wykorzystanie materiału kośćcozastępczego pod postacią beta-trójwapieniowego fosforanu właściwego dla zabiegów stabilizujących kręgośłup przy rekonstrukcji ściany zatoki klinowej oraz wypełnienie całego widocznego mikroskopowo światła zatoki klinowej materiałem autogenym (mięsień, powięź) w celu zamknięcia ewentualnych niewidocznych radiologicznie lub mikroskopowo ubytków w okolicy zatoki.

PODSUMOWANIE

Właściwe przygotowanie pacjentki do operacji obciążonej wysokim ryzykiem i zaplanowana opieka okołoperacyjna w sytuacji obecności najbardziej obciążającej wady zastawkowej serca, jaką jest ciężka stenoz aortalna, pozwoliły na skuteczne leczenie neurochirurgiczne płynotoku i zwiększenie szansy przeżycia.

Analiza prezentowanego przypadku spontanicznego płynotoku nosowego w przebiegu torbieni pajęczynówki jako niezwykle rzadkiej przyczyny płynotoku jest cenna pod względem zastosowanej techniki mikrochirurgicznej oraz wykorzystanej przedoperacyjnej diagnostyki obrazowej.

PIŚMIENNICTWO

1. Tóth M, Selivanova O, Schaefer S, Mann W: Spontaneous cerebrospinal fluid rhinorrhea: a clinical and anatomical study. *Laryngoscope* 2010; 120(9): 1724-1729.
2. Garcia-Uría J, Carrillo R, Serrano P et al.: Empty sella and rhinorrhea. A report of eight treated cases. *J Neurosurg* 1979; 50: 466-471.
3. Gacek RR, Gacek MR, Tart R: Adult spontaneous cerebrospinal fluid otorrhea: diagnosis and management. *Am J Otol* 1999; 20: 770-776.
4. Stone JA, Castillo M, Neelon B et al.: Evaluation of CSF leaks: high-resolution CT compared with contrast-enhanced CT and radionuclide cisternography. *AJNR Am J Neuroradiol* 1999; 20: 706-712.
5. Shetty PG, Shroff MM, Fatterpekar GM et al.: A retrospective analysis of spontaneous sphenoid sinus fistula: MR and CT findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 2000; 21: 337-342.
6. Dunn CJ, Alaani A, Johnson AP: Study on spontaneous cerebrospinal fluid rhinorrhoea: its aetiology and management. *J Laryngol Otol* 2005; 119: 12-15.
7. Schlosser RJ, Woodworth BA, Wilensky EM et al.: Spontaneous cerebrospinal fluid leaks: a variant of benign intracranial hypertension. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2006; 115: 495-500.
8. Wolf G, Greistorfer K, Stammberger H: Endoscopic detection of cerebrospinal fluid fistulas with a fluorescence technique. Report of experiences with over 925 cases. *Laryngorhinootologie* 1997; 76: 588-594.
9. Lindstrom DR, Toohill RJ, Loehrl TH et al.: Management of cerebrospinal fluid rhinorrhea: the Medical College of Wisconsin experience. *Laryngoscope* 2004; 114: 969-974.
10. Sillers MJ, Morgan CE, El Gammal T: Magnetic resonance cisternography and thin coronal computerized tomography in the evaluation of cerebrospinal fluid rhinorrhea. *Am J Rhinol* 1997; 11: 387-389.
11. Schlosser RJ, Bolger WE: Significance of empty sella in cerebrospinal fluid leaks. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2003; 128: 32-38.
12. Hooper AC: Sphenoidal defects – a possible cause of cerebrospinal fluid rhinorrhea. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1971; 34: 739-742.

otrzymano/received: 08.09.2017
zaakceptowano/accepted: 29.09.2017