

OPIS PRZYPADKU/CASE REPORT

Endokrynologia Polska/Polish Journal of Endocrinology
Tom/Volume 58; Numer Number 6/2007
ISSN 0423-104X

Trudności diagnostyczne w różnicowaniu przetoki tętniczo-żylnej — opis przypadku

Diagnostic difficulties in differentiating of arteriovenous fistula — case report

Barbara Reniewska¹, Małgorzata Mulak¹, Krzysztof Słowiński¹, Jolanta Rusiecka-Ziółkowska²¹Katedra i Klinika Okulistyki Akademii Medycznej, Wrocław²Katedra i Zakład Mikrobiologii Akademii Medycznej, Wrocław

Streszczenie

Przetoka tętniczo-żylna szyjno-jamista to nieprawidłowe połączenie pomiędzy oponowymi gałęziami tętnicy szyjnej lub kręgowej a zatokami opony twardej. Jej kliniczna manifestacja może przypominać główne objawy orbitopatii tarczycowej, zapalnego schorzenia oczodołu towarzyszącego chorobie Gravesa. Dlatego diagnostyka różnicowa orbitopatii tarczycowej i przekrwienia oczodołu obserwowanego w przebiegu przetoki tętniczo-żylnej często jest problematyczna dla klinicystów i radiologów. Opis przypadku dotyczy spontanicznej przetoki tętniczo-żylnej u 59-letniej pacjentki. Pierwszym objawem był jednostronny wytrzeszcz gałki ocznej. Po wykonaniu tomografii komputerowej (CT, *computed tomography*) i rezonansu magnetycznego (MRI, *magnetic resonance imaging*) ustalono wstępne rozpoznanie orbitopatii tarczycowej. Rezultatem leczenia kortykosteroidami było pogorszenie stanu miejscowego oka. Spowodowało to, że zaczęto się ponownie zastanawiać nad rozpoznaniem i oceną pacjentki z użyciem bardziej czułych technik, co doprowadziło do ostatecznego rozpoznania przetoki szyjno-jamistej.

*(Endokrynol Pol 2007; 58 (6): 530–533)***Słowa kluczowe:** przetoka tętniczo-żylna, orbitopatia tarczycowa, wytrzeszcz, diagnostyka różnicowa

Abstract

Arteriovenous carotid-cavernous fistula is an abnormal connection between the dural branches of carotid artery or vertebral artery and the dural sinuses. Its clinical manifestations can resemble the crucial signs of thyroid orbitopathy, an inflammatory disorder of the orbit associated with Graves' disease. Therefore, differential diagnosis of thyroid orbitopathy and the congestion of the orbit seen in arteriovenous fistula is often clinically and radiologically confused. This is the case report of the simultaneous occurrence of dural arteriovenous fistula in 59 years old woman. The first manifestation was unilateral exophthalmia. After Computer Tomography and Magnetic Resonance Imaging were performed, the preliminary diagnosis of thyroid orbitopathy was established. The response of eye disorder to corticosteroid treatment resulted in evident deterioration. This prompted a reconsideration of the diagnosis and a new evaluation of the patient with sensitive techniques, leading to the final diagnosis of arteriovenous fistula.

*(Pol J Endocrinol 2007; 58 (6): 530–533)***Key words:** arteriovenous fistula, thyroid orbitopathy, exophthalmia, differential diagnosis

Wstęp

Tętniczo-żylne malformacje oponowe, inaczej przetoki tętniczo-żylne opony twardej są to nieprawidłowe połączenia pomiędzy oponowymi gałęziami tętnicy szyjnej zewnętrznej, wewnętrznej lub kręgowej, a zatokami opony twardej. Uważa się, że malformacje te są zmianami nabytymi, najczęściej pourazowymi i stanowią 10–15% wszystkich tętniczo-żylnych malformacji mózgowia. Występują 3-krotnie częściej u kobiet niż



Dr med. Barbara Reniewska
Katedra i Klinika Okulistyki Akademii Medycznej we Wrocławiu
ul. Chałubińskiego 2a, 50-368 Wrocław
tel.: 071 784 24 27, 071 784 24 28, 071 327 09 47
faks: 071 784 15 83
email: klinika@okulist.am.wroc.pl

u mężczyzn; nie stwierdzono związku ich występowania z wiekiem chorych [1, 2]. Objawy powodowane przez te malformacje są bardzo różnorodne — związane z lokalizacją przetoki, ilością i kierunkiem dopływu i odpływu krwi [2, 3]. Mogą występować, pulsujący szum w uszach, zaczerwienienie i obrzmienie gałki ocznej, objawy udaru, bóle głowy czy drgawki. Mogą również nastąpić powikłania krwotoczne, mimo że w przypadku malformacji oponowych zdarzają się rzadziej niż w innych malformacjach tętniczo-żylnych mózgowia. Część tętniczo-żylnych malformacji oponowych nie daje żadnych objawów i czasami wykrywa się je przypadkowo [2]. Spływ żylny z przetok tętniczo-żylnych następuje najczęściej do zatoki poprzecznej (50% przypadków) oraz jamistej, jednak spotyka się również przetoki do zatoki esowatej i strzałkowej górnej [2, 3]. Opisywane przetoki klasyfikuje się ze względu na rodzaj drenażu oraz lokalizację [1–3].

Jedna z klasyfikacji dotyczy przetok szyjno-jamistych. Zgodnie z klasyfikacją Barrowa, przetoki szyjno-jamiste dzieli się na bezpośrednie (typ A) i pośrednie (typy B–D) [4]. Typ A to bezpośrednie połączenie o wysokim przepływie pomiędzy odcinkiem wewnątrzjamistym tętnicy szyjnej wewnętrznej a zatoką jamistą jako skutek uszkodzenia ściany tętnicy. W przypadku pośrednich przetok szyjno-jamistych, wewnątrzjamisty odcinek tętnicy szyjnej wewnętrznej jest niezmienny, natomiast przeciek występuje pomiędzy odgałęzieniami oponowymi tętnicy szyjnej wewnętrznej (typ B), tętnicy szyjnej zewnętrznej (typ C) lub obu tych tętnic szyjnych (typ D) a zatoką jamistą. Pośrednie przetoki szyjno-jamiste najczęściej występują u starszych kobiet. Kliniczna manifestacja zależy od miejsca wywołanych zaburzeń w drenażu krwi. Odwrócenie przepływu krwi w żyłę ocznej górnej może powodować wiele objawów ocznych, takich jak: wytrzeszcz, obrzęk, nastrzyknięcie i przekrwienie spojówek, porażenie mięśni okoruchowych, ból zagałkowy oczodołu, wzrost ciśnienia wewnątrzgałkowego i spadek ostrości widzenia [5].

W diagnostyce neuroradiologicznej stosuje się tomografię komputerową (CT, *computed tomography*) wraz z opcją angio-CT, rezonans magnetyczny (MRI, *magnetic resonance imaging*) oraz angiografię cewnikową. Tylko za pomocą tej ostatniej metody można wykazać kierunek i rodzaj spływu żylnego, co jest konieczne do ustalenia zagrożenia krwawieniem.

Leczenie stosuje się u chorych, u których występują objawy kliniczne oraz w przypadkach krwawienia. Wykonuje się zarówno operację neurochirurgiczną, jak i przeznaczeniową embolizację przetok [1–3]. Ze względu na niskie ciśnienie i powolny przepływ, pośrednie przetoki szyjno-jamiste ulegają w 10–73% spontanicznie całkowitemu lub częściowemu zakrzepowemu wycofaniu się objawów [5].

Opis przypadku

Pacjentkę w wieku 59 lat przekazano w ramach ostrego dyżuru na oddział endokrynologiczny z powodu narastającego prawostronnego wytrzeszczu. Na oddziale endokrynologicznym przeprowadzono diagnostykę i leczenie w kierunku orbitopatii. Wytrzeszcz utrzymywał się od 3 miesięcy. U pacjentki wykonano CT głowy i MRI oczodołów, które wykazały niewielki prawostronny wytrzeszcz, nieznaczne pogrubienie mięśni prostych przyśrodkowego, górnego i dolnego oraz poszerzenie prawej górnej żyły oczodołowej. Na podstawie wykonanych badań podjęto leczenie pulsami metylprednisolonu (Solu-Medrol). Po drugim pulsie nastąpiło zaostrenie zmian zapalnych gałki ocznej z bólem i znacznego stopnia obrzękiem struktur okołogałkowych. U chorej zastosowano leczenie odbarczające z zastosowaniem acetazolamidu (Diuramid) i mannitolu. Po konsultacji chirurga szczękowego podejrzewano obecność przetoki szyjno-jamistej. W przeprowadzonych badaniach laboratoryjnych wykazano w układzie krzepnięcia cechy nadkrzepliwości.

Stan przedmiotowy w dniu wypisu:

Ostrość wzroku do dali według Snellena:

oko prawe	c.c. +1,5 Dsph = 0,3
oko lewe	c.c. +2,0 Dsph = 0,6–0,7

Ostrość wzroku do bliży według Snellena:

oko prawe	c.c. +4,0 Dsph = D–1,0
oko lewe	c.c. +4,0 Dsph = D–0,5

Oko prawe: gałka oczna ustawiona w niewielkim wytrzeszczu, brak odwodzenia, ograniczenie ruchomości ku dołowi, zachowana ruchomość ku górze i do nosa. Chemoza spojówki, rogówka gładka lśniąca przezierana, czucie rogówki osłabione, reakcja bezpośrednia źrenicy osłabiona. Dno: tarcza nerwu II bładoróżowa o widocznych granicach w poziomie dna. Od dołu i nosa widoczny pęcherz odłączonej naczyńki.

Oko lewe: gałka oczna osadzona, ustawiona i ruchoma prawidłowo. Odcinek przedni bez zmian. Ośrodki optyczne przezierne. Dno: tarcza nerwu II bładoróżowa o widocznych granicach w poziomie dna. Naczynia o prawidłowym przebiegu i szerokości.

Podczas pobytu w Klinice Okulistyki wykonano angiografię naczyń mózgowych. W wyniku przeprowadzonych badań rozpoznano przetokę oponowo-jamistą po stronie prawej zaopatrywaną przez tętnicę potyliczną prawą, klasyfikowaną jako typ C według Barrowa. Pacjentkę zakwalifikowano do leczenia na drodze embolizacji wewnątrznaczyniowej.

Dyskusja

Przetoki szyjno-jamiste dzielą się na bezpośrednie i pośrednie. Bezpośrednie przetoki są najczęściej

pourazowe i charakteryzują się dramatycznymi objawami wynikającymi z wysokiego przepływu krwi. Objawy te to klasyczna triada: pulsujący wytrzeszcz, obrzęk spojówek i silny szum w głowie. Rozpoznanie kliniczne z reguły nie stanowi większego problemu. W pośrednich przetokach szyjno-jamistych przepływ krwi jest wolniejszy, przez co objawy kliniczne są mniej wyeksponowane, a diagnostyka trudniejsza. W przypadku przedstawionej pacjentki ostatecznie rozpoznano pośrednią przetokę oponowo-jamistą, charakteryzującą się subtelnymi objawami klinicznymi. Brak charakterystycznego dla przetok tętniczo-żylnych szmeru przepływowego, łagodne i nieliczne objawy kliniczne nie pozwoliły na postawienie prawidłowego wstępnego rozpoznania.

Wśród przyczyn wytrzeszczu gałek ocznych u dorosłych znajduje się wiele różnych stanów chorobowych: orbitopatia tarczycowa, zapalenie tkanek miękkich oczodołu, idiopatyczne zapalenie tkanek oczodołu (guz rzekomy), przetoka szyjno-jamista, zakrzep zatoki jamistej, guzy przerzutowe (np. oskrzela, stercz), naczynek jamisty, oponiak nerwu wzrokowego, żyłki oczodołu, guzy limfatyczne, oponiak grzebienia kości klinowej, torbiele śluzowe, choroba Pageta czaszki, guzy zatok naciekające oczodoł. Pierwszym objawem klinicznym u niniejszej pacjentki był jednostronny, narastający od 3 miesięcy wytrzeszcz gałki ocznej. W takich przypadkach w diagnostyce różnicowej zawsze należy brać pod uwagę złośliwe procesy rozrostowe w obrębie oczodołu. W celu wykluczenia nowotworowej przyczyny wytrzeszczu wykonuje się badanie obrazowe CT i/lub MRI.

Klinicznymi objawami pośredniej przetoki szyjno-jamistej są: obrzęk i przekrwienie spojówek (94%), wytrzeszcz gałki ocznej (87%), niedowład nerwów czaszkowych (54%), wzrost ciśnienia wewnątrzgałkowego (60%), podwójne widzenie (51%) i spadek ostrości widzenia (28%) [5]. Choroba Gravesa jest względnie powszechnym stanem. Występuje wśród 2% kobiet i znacznie rzadziej u mężczyzn, typowo między 20. a 50. rokiem życia. Najczęstszą pozatarczycową manifestacją jest orbitopatia. Niesymetryczne zajęcie oczodołu jest powszechne, podczas gdy prawdziwie jednostronna choroba występuje rzadko [6]. W przebiegu choroby Gravesa mogą wystąpić objawy oczne, włączając wytrzeszcz, niedowład mięśni gałkoruchowych z podwójnym widzeniem, przekrwienie oczodołu, obrzęk tkanek okołoczodołowych, nastrzyknięcie i obrzęk spojówek oraz rzadko uciskowa neuropatia wzrokowa [6]. Powiększenie mięśnia prostego górnego w przebiegu orbitopatii tarczycowej może spowodować ograniczenie odpływu żylnego z oczodołu poprzez prosty ucisk i/lub wywołanie zapalenia okołozylnego, będącego następstwem przejścia procesu zapal-

nego z mięśnia na żyłę oczną górną. Kliniczna manifestacja przetoki szyjno-jamistej może imitować główne objawy orbitopatii tarczycowej.

Surowicze odłączenie naczyńówki ma bezpośredni związek z przetoką szyjno-jamistą i jest spowodowane utrudnionym odpływem krwi z krążenia naczyńówkowego. Objaw ten nie występuje w orbitopatii tarczycowej, natomiast spotyka się fałdy naczyńówki [7].

Po CT głowy, która wykluczyła większość procesów rozrostowych jako przyczynę wytrzeszczu, pacjentkę przyjęto na oddział endokrynologiczny ze wstępnym rozpoznaniem orbitopatii tarczycowej. Orbitopatia w przebiegu choroby Gravesa u 59-letniej kobiety jest bardziej prawdopodobną przyczyną wytrzeszczu niż przetoka szyjno-jamista, nawet jeżeli jest to wytrzeszcz jednostronny. W trakcie pobytu na oddziale endokrynologicznym wykonano badanie MRI oczodołów w celu wykluczenia zmian rozrostowych, które mogły zostać przeoczone w badaniu CT głowy. Stwierdzone w badaniu MRI wytrzeszcz, pogrubienie mięśni okoruchowych, a także poszerzenie żyły górnej ocznej są objawami niecharakterystycznymi, mogącymi występować zarówno w przetoce tętniczo-żylniej, jak i orbitopatii tarczycowej. Obraz MRI oraz stężenie tyreotropiny (TSH, *thyroid-stimulating hormone*) poniżej normy ($0,24 \mu\text{U/L}$) bardziej sugerowały orbitopatię tarczycową niż przetokę tętniczo-żylną.

Oftalmopatia Gravesa jest autoimmunologicznym schorzeniem o charakterze zapalnym. Nadczynność tarczycy jest spowodowana przez autoprzeciwciała IgG stymulujące receptory TSH, podczas gdy manifestacja pozatarczycowa stanowi wynik immunologicznej aktywacji fibroblastów w mięśniach zewnętrznych oka i skórze, z gromadzeniem glikozoaminoglikanów prowadzącym do zatrzymania wody, obrzęku i wytrzeszczu. Leczenie w takich przypadkach opiera się na zastosowaniu kortykosteroidoterapii w dawkach immunosupresyjnych — na przykład pulsach metylprednisolonu (Solu-Medrol). Obrzęk tkanek oczodołu i wytrzeszcz w przebiegu przetoki tętniczo-żylniej ma charakter zastoinowy, a nie zapalny. Po drugim pulsie Solu-Medrolu u pacjentki nastąpiło pogorszenie stanu miejscowego, co spowodowało, że wdrożono dalszą diagnostykę różnicową.

Przetoki oponowo-jamiste mogą okazać się niebezpieczne dla życia, powodując ślepotę, napady padaczkowe, udar i krwawienie wewnątrzczaszkowe. W przypadku progresji lub nieustępowania objawów, należy zakwalifikować pacjentów do leczenia zabiegowego [5]. U przypadku przedstawionym przez autorów niniejszej pracy w ciągu 3 miesięcy nie doszło do samoistnego zamknięcia przetoki, mimo nadkrzepliwości, oraz obserwowano progresję objawów.

Orbitopatia tarczycowa oraz przetoka tętniczo-żylna to stany chorobowe o odmiennej etiopatogenezie i jednocześnie podobnych objawach ocznych. Ich diagnostyka różnicowa często sprawia trudności klinicyście i radiologom. Powszechnie uważa się, że jeżeli zajęcie oczodołu jest obustronne i ściśle powiązane z obrazem choroby Gravesa, łatwo można postawić rozpoznanie orbitopatii tarczycowej. W przypadku zmian niesymetrycznych, zwłaszcza u pacjentów w stanie eutyreozy, zawsze należy wykonać czułe badania obrazowe, takie jak CT i MRI, w celu wykluczenia zmiany rozrostowej oczodołu. Przetokę zatoki jamistej zawsze rozważa się w diagnostyce różnicowej orbitopatii tarczycowej, zwłaszcza gdy zmiany oczne występują jednostronnie lub niesymetrycznie. Niesymetryczna odpowiedź na kortykosteroidy lub jej brak wywołuje konieczność dalszej diagnostyki i oceny z użyciem bardziej czułych technik, co może prowadzić do rozpoznania przetoki szyjno-jamistej [6].

Piśmiennictwo

1. Hurst RW, Marcotte P, Raps EC i wsp. Dural arteriovenous fistulas involving the superior sagittal sinus: acute presentation with intracranial hemorrhage. *Surg Neurol* 1998; 49: 42–46.
2. Szczerbo-Trojanowska M, Szajner M. Przeznaczeniowe leczenie wewnątrzczaszkowych przetok tętniczo-żylnych opony twardej. W: Walecki J (red.). *Neuroradiologia. Upowszechnianie Nauki — Oświata*, Wyd. 1. Warszawa 2000; t. 1: 351–353.
3. Malek AM, Halbach VV, Dowd CF i wsp. Diagnosis and treatment of dural arteriovenous fistulas. *Neuroimaging Clin N Am* 1998; 8: 445–68.
4. Barrow DL, Spector RH, Braun IF i wsp. Classification and treatment of spontaneous carotid cavernous fistulas. *J Neurosurg* 1985; 62: 248–256.
5. Kirch M, Henkes H, Liebig T i wsp. Endovascular management of dural carotid-cavernous sinus fistulas in 141 patients. *Neuroradiology* 2006; 48: 486–490.
6. Lore F, Polito E, Cerase A i wsp. Carotid cavernous fistula in a patient with Graves' ophthalmopathy. *The Journal of Clinical Endocrinology & Metabolism* 2003; 88: 3487–3490.
7. Kowal L. Choroidal folds in Graves' ophthalmopathy. *Aust N Z J Ophthalmol* 1994; 22: 216.