

УДК 616.71-002.5-089

# Субокципитальный туберкулез: отдаленный результат первой краниовертебральной реконструкции, выполненной у ребенка (редкое клиническое наблюдение<sup>1</sup>)

А.Ю. Мушкин, В.П. Сنيщук, В.А. Евсеев, Е.Ю. Малярова

Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии Минздрава России

## Suboccipital tuberculosis: long-time follow up of the first cranial-cervical reconstruction in pediatric patient (rare clinical case)

A.Yu. Mushkin, V.P. Snishhuk, V.A. Evseev, E.Yu. Maljarova

St. Petersburg Research Institute for Phthisiopulmonology of the Ministry of Health of the Russian Federation

### Резюме

Анализируются особенности клинического течения, ближайшие и отдаленные результаты хирургического лечения субокципитального туберкулеза, вызванного ШЛУ-МБТ, у ребенка, впервые оперированного в возрасте 7 лет. Отдаленные результаты прослежены через 8 лет после операции.

**Ключевые слова:** туберкулез; субокципитальный туберкулез; краниовертебральная фиксация; ШЛУ-МБТ, инклинация позвоночника; краниовертебральная нестабильность; хирургическое лечение; отдаленные результаты.

### Summary

7 years old boy with suboccipital tuberculosis caused by ExDR MbT was operated with combined trans-oral and posterior approaches. Clinical peculiarities, short-time and long-time (8 yrs) follow-up are analyzed.

**Keywords:** tuberculosis; sub-occipital tuberculosis; extra-drug resistance M.tuberculosis; occipital-atlas instability; atlas-axis instability; spinal inclination; surgical treatment; long-time follow up.

Термин «субокципитальный туберкулез» используют для обозначения специфического поражения мыщелков затылочной кости (Ос) и верхних шейных позвонков (С<sub>1</sub>, С<sub>2</sub>). Разрушение элементов этой ана-

томо-функциональной системы приводит к нестабильности, наиболее грубым осложнением которой является сдавливание каудальных отделов продолговатого мозга и краниальных отделов спинного мозга,

<sup>1</sup> Ранние результаты хирургического лечения данного пациента опубликованы в статье: Мушкин А.Ю., Алаторцев А.В., Першин А.А., Ульрих Э.В., Евсеев В.А., Коваленко К.Н., Советова Н.А. Хирургическое лечение субокципитального туберкулеза у детей // Хирургия позвоночника. — 2008. — № 4. — С. 47–51.

представляющее непосредственную опасность для жизни [1–5]. Вопросы хирургической коррекции этой патологии отражены в единичных работах, касающихся прежде всего взрослых пациентов [6–9].

Первый ребенок с субокципитальным туберкулезом был оперирован в СПб НИИФ в 2007 г. Описание этого наблюдения явилось и первой отечественной публикацией, посвященной применению трансорального доступа и задней краниоцервикальной инструментации у детей [10]. Полученные спустя 8 лет новые данные позволяют еще раз вернуться к этому случаю.

Мальчик М. Д., из семейного контакта с больным туберкулезом, умершим за год до выявления заболевания у пациента (сведений о лекарственной чувствительности микобактерий нет). Болен с 6 лет, когда впервые диагностирован туберкулез внутригрудных лимфатических узлов (ТВГЛУ), осложненный бронхолегочным поражением и экссудативным плевритом, по поводу которых получал основной курс противотуберкулезной терапии на протяжении 1 года 4 мес. Боли в шее, головные боли, правосторонняя кривошея появились в 7 лет, сопровождались увеличением шейных лимфатических узлов, в которых после лимфаденэктомии гистологически верифицирован туберкулез. Показанием для направления документов в СПб НИИФ послужило случайное выявление на рентгенограмме шейного отдела позвоночника ретрофарингеального абсцесса.

Поступил в СПб НИИФ в возрасте 7 лет 6 мес. в состоянии средней тяжести, с признаками хронической интоксикации: снижением аппетита, бледными кожными покровами и видимыми слизистыми, перiorальным цианозом. Жалобы на шумное дыхание, затруднение глотания, невозможность держать голову в вертикальном положении. Постоянно находился в воротнике Шанца, при снятии которого из-за болей вынужден «держать голову руками». Отмечались шумное носовое дыхание с раздуванием крыльев носа, обильное слюнотечение и нарушение глотания во сне. Двигательных нарушений и нарушений чувствительности нет.

При обследовании, проведенном с учетом принятых на тот период требований, отмечены высокая СОЭ (21 мм/ч) и резко положительные специфические серологические тесты: РНГА-туб ¼+++; РПК-туб 26,0; РПГ-туб 22,0; ИФА-туб 2,485. Туберкулинодиагностика: RM 2 TE — р 15 мм (ретроспективно — нормергия на протяжении всех лет жизни), ГКП — р 7; р 6; р 4; отр. В мазках из носа выделен *Staph. epidermidis*, из зева — *Strept. pneumonia*, *Candida*.

Выявленные на рентгенограммах и КТ изменения органов грудной клетки соответствуют фазе уплотнения и рассасывания ТВГЛУ, костей таза — деструкции правого крестцово-подвздошного сочленения.

При лучевом исследовании (Rg и КТ) шейного отдела позвоночника (рис. 1, а–в) выявлены резкое расширение ретрофарингеального пространства (заглоточный абсцесс), деструкция передней дуги С<sub>1</sub> с дислокацией его задней дуги кпереди и проксимальным смещением зуба С<sub>2</sub>, соответствующие его инклинации со стенозом позвоночного канала. Несмотря на распространение разрушения передней полудуги атланта справа до канала позвоночной артерии, при доплерографии сосудов головного мозга в области шеи экстравазальной компрессии не выявлено.

При неоднократной пункции заглоточного абсцесса удалялось от 8,0 до 18,0 мл гноя, бактериоскопически обнаружены кислотоустойчивые бактерии, позднее выделена культура микобактерий туберкулеза (МБТ); с учетом анамнеза и неэффективности лечения предположена их лекарственная устойчивость.

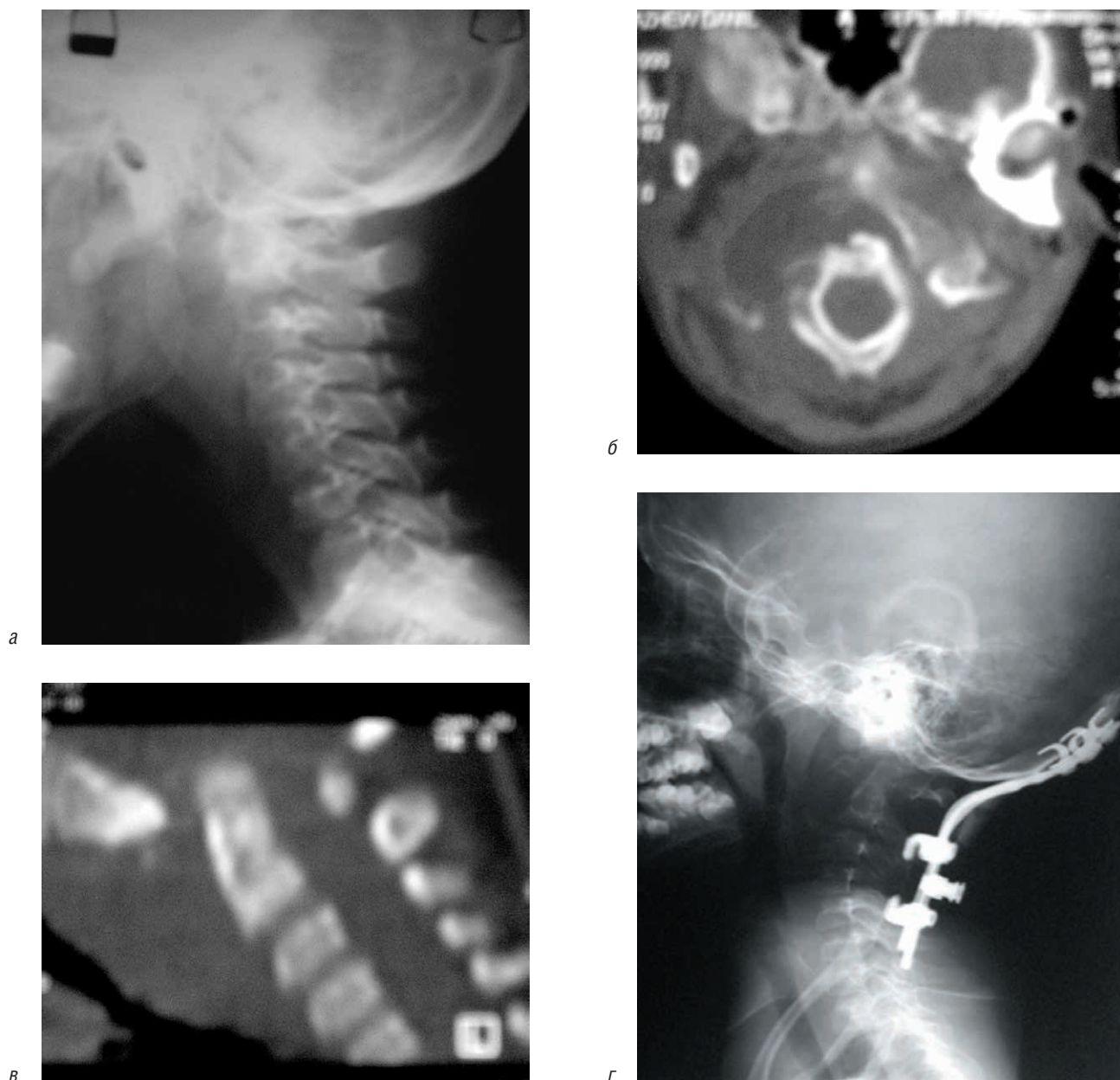
Диагноз расценен как **генерализованный туберкулез**, МЛУ МБТ(+): поражение внутригрудных лимфатических узлов, лимфатических узлов шеи и множественные костные поражения включая субокципитальный туберкулез и туберкулез крестцово-подвздошного сочленения. Осложнениями туберкулеза сустава Крювелье явились заглоточный абсцесс с обструкцией носоглотки и базиллярная импрессия с атланта-аксиальной и атланта-окципитальной нестабильностью.

14.02.07 выполнена комбинированная операция (подробно описана в [10]), основными этапами которой явились:

- задняя краниоцервикальная инструментальная фиксация (система Vertex, Medtronic Sofamor Danek™ в крючковой комплектации) и костнопластический окципитоспондилодез фигурной кортикальной аллокостью с дополнительной фиксацией задней дуги атланта лавсановой нитью к стержням конструкции, что обеспечило редукцию С<sub>1</sub> (рис. 1, з);
- некрабсцессэктомия С<sub>1</sub>–С<sub>2</sub> из трансорального доступа через заднюю стенку глотки с удалением большого количества некротических масс, тканевого детрита и жидкого гноя.

В послеоперационном периоде проводились трансфузии эритроцитарной массы, перевязки, симптоматическая терапия; иммобилизация в ортезе типа Philadelphia. После частичного расхождения задняя рана зажила вторичным натяжением. Сразу же после операции нормализовалось дыхание, исчезли явления дисфагии. При рентгенологическом контроле выявлено низведение верхних шейных позвонков до нормального уровня с полной ликвидацией инклинации С<sub>2</sub>.

Гистологически подтверждено активное продуктивно-некротическое туберкулезное воспаление. При исследовании выделенных из абсцесса и опера-



**Рис. 1.** Данные лучевых обследований краниовертебральной зоны ребенка М. в возрасте 7 лет при первичном поступлении: *а* — боковая рентгенограмма шейного отдела позвоночника. Отсутствует передняя дуга  $C_1$ , превертебральный (ретрофарингеальный) абсцесс. Дислокация задней дуги  $C_1$  кпереди с сужением позвоночного канала; *б* — сагиттальный срез КТ: отсутствует передняя дуга  $C_1$ , задняя дуга  $C_1$  смещена спереди, стеноз позвоночного канала; зуб  $C_2$  смещен в большое затылочное отверстие (БЗО); *в* — аксиальный срез КТ: разрушены правая половина передней дуги и боковая масса  $C_1$ , замещенные абсцессом; *г* — боковая рентгенограмма после операции: зуб  $C_2$  низведен ниже входа в БЗО, ликвидирован стеноз позвоночного канала. На фоне фиксирующей конструкции видна тень костного трансплантата

ционного материала культур МБТ установлена устойчивость к большинству противотуберкулезных препаратов (H, S, R, Mb, E, Pt, K), в связи с чем назначен индивидуальный курс 5 препаратами резерва, витамины группы В и гепатопротекторы.

Через 2 мес. (03.04.07) выполнена резекция крестцово-подвздошного сочленения с аллопластикой. Гладкое послеоперационное течение. Вертикализи-

рован на костылях без нагрузки на конечность через 1 мес. Выписан из клиники в диспансер по месту жительства в удовлетворительном состоянии через 4 мес. после реконструкции краниовертебральной области для продолжения противотуберкулезной химиотерапии.

Заочно консультирован через 6 мес., 1 и 2 года после операции — субъективных жалоб не предъяв-



**Рис. 2.** Фронтальная (а) и боковая (б) функциональные сериофотограммы пациента в возрасте 15 лет, иллюстрирующие ограничение ротационных и сгибательно-разгибательных движений шеи

лял, продолжал лечение, двигательную активность не ограничивал. На фоне стабильной лучевой картины и клинического состояния выпал из-под нашего наблюдения в период с 2010 по 2015 г.; документы для этапного контроля направлены региональным противотуберкулезным диспансером в 2015 г.

Поступил в детскую хирургическую клинику СПб НИИФ в возрасте 15 лет, ровно через 8 лет после операции на краниовертебральной зоне. Активно жалоб не предъявляет. При целенаправленном опросе обращает внимание на незначительный дискомфорт в области шеи при движениях головы, объем которых значительно ограничен во всех 3 плоскостях, больше всего — за счет ротации (рис. 2).

**Рис. 3.** Боковая рентгенограмма краниовертебральной зоны пациента в возрасте 15 лет. Хорошо сформирован единый костный блок дуг  $C_2-C_5$  и задний костный окципитоспондилоз. Нижний конец стержня конструкции упирается в дугу  $C_6$  с формированием на ней краевой узуры



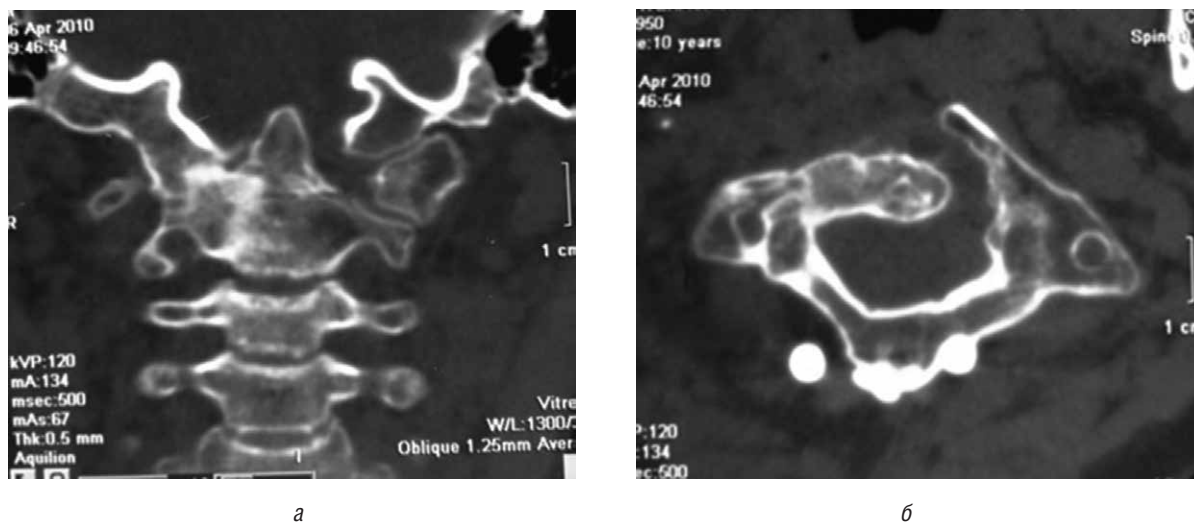


Рис. 4. Коронарный (а) и аксиальный (б) срезы КТ пациента в возрасте 15 лет. Костное сращение зуба и боковых масс  $C_2$  с затылочной костью

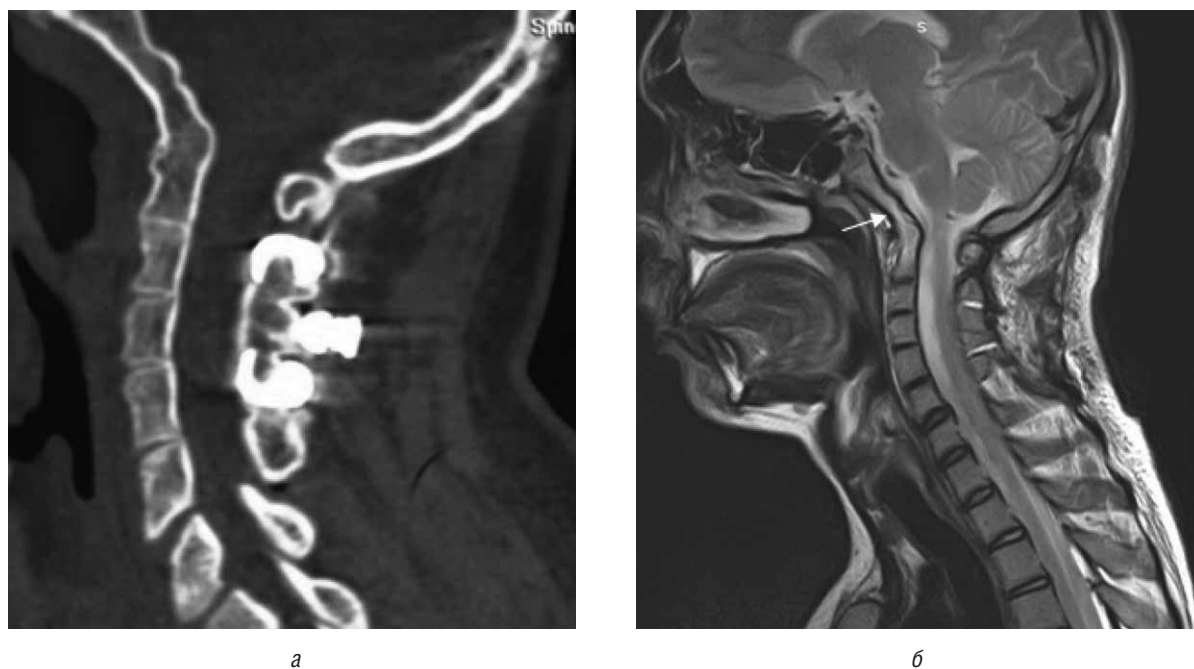


Рис. 5. Сагиттальные КТ (а) и МРТ (б) срезы пациента в возрасте 15 лет. Сращение затылочного ската с шейными позвонками (обозначен стрелкой) без вторичной деформации или стеноза краниовертебрального канала и нормальным положением мозга

При рентгенографии (рис. 3), КТ и МРТ (рис. 4 и 5) краниовертебральной зоны посттуберкулезные изменения характеризуются формированием костного блока  $Os-C_1-C_2$  без признаков остаточной деструкции или стеноза позвоночного канала. Затылочный скат и верхние шейные позвонки образовали единую, фактически однородную, структурированную кость. Субаксиальные межпозвоночные диски ( $C_{2-3}$ ,  $C_{3-4}$ ,  $C_{4-5}$ ) резко сужены, дуги  $C_{2-5}$  анкилозированы. Нижние кон-

цы стержней упираются в дужку  $C_6$ , вызывая ее поверхностью узурацию.

Изменения в зоне, прилежащей к нижнему уровню блокирования, расценены как возможная причина явлений дискомфорта, в связи с чем принято решение об удалении конструкций. При операции (15.04.2015) визуализирован полноценный задний костный блок от затылочной кости до дуги  $C_5$ . При клиническом контроле в течение недели существенных жалоб не предъявлял.

## Обсуждение

Анализируемое наблюдение уникально по нескольким причинам:

- во-первых, показана эффективность активного включения хирургических методов в лечение костно-суставного туберкулеза, вызванного микобактериями, лекарственная устойчивость которых с современных позиций расценивается как широкая (eX-DR);
- во-вторых, получена абсолютно новая информация о послеоперационном развитии краниовертебральной зоны после ее реконструкции с инструментальной фиксацией у активно растущего ребенка. Визуализировано формирование переднего и заднего блока Ос–С<sub>5</sub> без развития вторичных стенозов и дислокаций;

- в-третьих, данное наблюдение оказалось первым среди более 15 реконструктивных операций, проведенных детям с различной патологией краниовертебральной зоны уже после описанного случая. В последующем мы стали отдавать предпочтение, во-первых, превентивной внешней фиксации в аппарате Halo-cast, во-вторых, менее протяженной инструментации шейного отдела. Ранняя внешняя механическая стабилизация позволяет быстро улучшить состояние ребенка и в ряде случаев уменьшить или ликвидировать смещения С<sub>1</sub> и С<sub>2</sub> при корригирующих манипуляциях в аппарате. Уменьшение протяженности фиксации сохраняет больший объем движений шейного отдела позвоночника, что может иметь существенное значение при анализе отдаленных результатов.

## Список литературы

1. *Ветрилэ С.Т., Колесов С.В.* Краниовертебральная патология. — М.: Медицина, 2007. — 320 с.
2. *Желтов И.И.* Туберкулез шейного отдела позвоночника у детей. — Ташкент: Медицина, 1967. — 94 с.
3. *Корнев П.Г.* Костно-суставной туберкулез. — Л.: Медгиз, 1953.
4. *Krishnan A., Patkar D., Patankar T., Shan J., Prasad S., Bunting T., Casillo M., Mukherji S.K.* Craniovertebral junction tuberculosis: a review of 29 cases // *J. Comput. Assist. Tomogr.* — 2001. — N 25(2). — P. 171–176.
5. *Гранчи В.* К вопросу о рентгенологическом исследовании субокципитальной области // *Рад. диагн.* — 1960. — № 5. — С. 675–687.
6. *Лавров В.Н., Киселев А.М., Ахмедов Э.С., Перецманас Е.О.* Тактика диагностики и хирургического лечения спондилитов шейного отдела позвоночника // *Актуальные вопросы выявления, диагностики и лечения внелегочного туберкулеза.* — СПб.: СПб НИИФ, 2006. — С. 197–200.
7. *Ibahion K., Ait Ben A., Choikri M., Sami, Achoiri V., Ouboukhlik A., El Kamar A., El Azrabi A.* Suboccipital tuberculosis: a case report // *Neurochirurgie.* — 2001. — N 47(1). — P. 66–68.
8. *Stecken J., Boissonnet H., Manzo L., Pheline C., Dobbelaere P., Yaffi D.* Suboccipital Pott's disease // *Neurochirurgie.* — 1987. — N 33(6). — P. 482–486.
9. *Wang L.X.* Peroral local debridement for treatment of tuberculosis of the atlant and axis // *Chir. J. Orthop.* — 1981. — Vol. 1, N 4. — P. 207–209.
10. *Мушкин А.Ю., Алаторцев А.В., Першин А.А., Ульрих Э.В., Евсеев В.А., Коваленко К.Н., Советова Н.А.* Хирургическое лечение субокципитального туберкулеза у детей // *Хирургия позвоночника.* — 2008. — № 4. — С. 47–51.

## Bibliography

1. *Vetrile S.T., Kolesov S.V.* Craniovertebral'naya patologiya. — M.: Meditsina, 2007. — 320 p. (rus)
2. *ZheltoV I.I.* Tuberkulez sheinogo otdela pozvonochnika u detei. Tashkent: Meditsina, 1967. — 94 p. (rus)
3. *Kornev P.G.* Kostno-sustavnoi tuberkulez. — L.: Medgiz, 1958. (rus)
4. *Krishnan A., Patkar D., Patankar T., Shan J., Prasad S., Bunting T., Casillo M., Mukherji S.K.* Craniovertebral junction tuberculosis: a review of 29 cases // *J. Comput. Assist. Tomogr.* — 2001. — N 25(2). — P. 171–176.
5. *Grancea V.* K voprosu o rentgenologicheskom issledovanii suboktsipital'noi oblasti // *Rad. diagn.* — 1960. — N 5. — P. 675–687. (rus)
6. *Lavrov V.N., Kiselev A.M., Akhmedov E.S., Peretsmanas E.O.* Taktika diagnostiki i khirurgicheskogo lecheniya spondilitov sheinogo otdela pozvonochnika // *Aktual'nye voprosy vyyavleniya, diagnostiki i lecheniya vnelegochnogo tuberkuleza.* — SPb.: SPb NIIF, 2006. — P. 197–200. (rus)
7. *Ibahion K., Ait Ben A., Choikri M., Sami, Achoiri V., Ouboukhlik A., El Kamar A., El Azrabi A.* Suboccipital tuberculosis: a case report // *Neurochirurgie.* — 2001. — N 47(1). — P. 66–68.
8. *Stecken J., Boissonnet H., Manzo L., Pheline C., Dobbelaere P., Yaffi D.* Suboccipital Pott's disease // *Neurochirurgie.* — 1987. — N 33(6). — P. 482–486.
9. *Wang L.X.* Peroral local debridement for treatment of tuberculosis of the atlant and axis // *Chir. J. Orthop.* — 1981. — Vol. 1, N 4. — P. 207–209.
10. *Mushkin A.Yu., Alatorsev A.V., Pershin A.A., Ul'rikh E.V., Evseev V.A., Kovalenko K.N., Sovetova N.A.* Khirurgicheskoe lechenie suboktsipital'nogo tuberkuleza u detei // *Khirurgiya pozvonochnika.* — 2008. — N 4. — P. 47–51. (rus)