

Meningomyelitida s mnohočetnými abscesy v míše jako komplikace dorsálního dermálního sinu

MUDr. Vojtěch Balatka¹, MUDr. Tomáš Radovnický, Ph.D.², MUDr. Magdalena Tykvová³

¹Dětská klinika FZS UJEP, Masarykova nemocnice, Krajská zdravotní, a. s., Ústí nad Labem

²Neurochirurgická klinika FZS UJEP, Masarykova nemocnice, Krajská zdravotní, a. s., Ústí nad Labem

³Radiologická klinika FZS UJEP, Krajská zdravotní, a. s., Ústí nad Labem

V kazuistickém sdělení představujeme 4měsíčního chlapce, který byl přeložen na naše pracoviště ze spádové nemocnice s anamnézou 3 dny trvajících horeček, kataru horních cest dýchacích (HCD), jinak chudým klinickým nálezem. Důvod překlada nebyla pouze nejednoznačná diagnóza, ale především riziková anamnéza. Po narození byla zjištěna vrozená vývojová vada – dorsální dermální sinus společně se syndromem fixované míchy (tethered cord syndrom). Snímky z magnetické rezonance (MRI) ukázaly pouze vazivový pruh vedoucí od páteřního kanálu ke kožnímu povrchu. Jak se později ukázalo ani vyšetření MRI vždy neodhalí všechno. U našeho pacienta to vedlo ke vzniku mnohočetných abscesů v páteřním kanále od sakrální krajiny až po krční míchu, s následnou těžkou diparézou dolních končetin a retencí moči. Život chlapci zachránil chloramfenicol, který se dnes v pediatrii používá již velmi vzácně.

Klíčová slova: dorsální dermální sinus, absces, chloramfenicol, dermoidní cysta, meningomyelitida.

Meningomyelitis with multiple abscesses in the spinal cord as result of complication of dermal dorsal sinus

In the following case report we present the case of a 4-month old boy, who was transferred to our department from a smaller regional hospital and presented with a 3-day lasting fever and upper respiratory catarrh. His clinical examination was insignificant however, he was diagnosed with a dorsal dermal sinus and tethered cord syndrome at birth, making him a high-risk patient. The initial MRI showed merely a band of fibrous tissue reaching from the spinal canal to the dermal surface. However, not even an MRI scan reveals everything, as was shown later. Our patient developed multiple abscesses from cervical to sacral spine, which resulted in severe paraparesis of the lower extremities as well as urinary retention. The patient's life was saved by chloramphenicol, an antibiotic rarely used in pediatric medicine.

Key words: dorsal dermal sinus, abscess, chloramphenicol, dermoid, dermoid cyst.

Úvod

Dorsální dermální sinus je vrozená dysráfie způsobená nekompletní separací povrchového a neurálního ektodermu (1).

Projevuje se kožní abnormitou (variantami od kožního záhybu až po kanál vystlaný epitelem komunikující s durálním vakem), neurologickým postižením či infekcí (2). Vyskytuje se přibližně u 1 z 2 500 narozených dětí (2). Často je asociovan

s dalšími anomáliemi centrálního nervového systému, jako jsou rozštěpové vady nebo syndrom fixované míchy (tethered cord syndrom) (1, 2). Řešení je chirurgické – resekce a uzavření komunikace (1, 3). I při bezpříznakovém průběhu je nutná radikální chirurgická léčba, aby se předešlo vážným komplikacím, které mohou nastat (1, 3). V našem případě byl naplánovaný elektivní výkon po dosažení 1 roku věku.

Kazuistika

Chlapec byl z I. nekomplikované gravidity, indukovaný porod ve 40. gestačním týdnu, adaptace nekomplikovaná.

V měsíci věku byl odeslán PLDD k dovyšetření pro nález kožní vklesliny v sakrální oblasti. Provedené MRI vyšetření ve 3 měsících věku (Obr. 1) potvrdilo diagnózu dorsálního dermálního sinu, který vazivovým pruhem komu-

je s páteřním kanálem. Dále byl popsán syndrom fixované míchy (tethered cord syndrom). Neurolog popisuje mírnou axiální hypotonii, volnou predilekci hlavičky doprava. UZ hlavičky je v normě. Neurochirurg indikuje radikální resekci a dethetering míchy v roce věku vzhledem k bezpříznakovému průběhu a MRI nálezu.

Měsíc poté je chlapec hospitalizován ve spádové nemocnici pro horečky s chudým klinickým nálezem. V laboratoři při příjmu CRP 2 mg/l, leukocytóza 17 tis., trombocytóza 580 tis., kultivační vyšetření moči je negativní. V dalším průběhu proveden RTG plic, UZ břicha a UZ hlavičky – vše s normálním nálezem. Postupně dochází k elevaci CRP, trvá leukocytóza. Klinicky dominují horečky 39–40 °C a neklid. 3. den hospitalizace přeložen na Dětskou kliniku v Ústí nad Labem (DK MNUL). Při převozu 3x zvracel.

1. den hospitalizace na DK MNUL se objevují četné řídké stolice. Na symptomatické terapii dochází rychle k úpravě stavu, virologie negativní (rotaviry, adenoviry, noroviry). Chlapec byl dále intermitentně febrilní, negativistický. Dochází k poklesu zánětlivých markerů. Hemokultura byla negativní. Okolí dermálního sinu bylo po celou dobu klidné a bez sekrece.

Po třech dnech se objevuje u dítěte zvracení, oligurie. Při UZ břicha dominuje naplněný močový měchýř a hypotonie ureteru vlevo. Pro oligurii byl zaveden permanentní močový katetr (PMK). Moč byla kultivačně opakovaně negativní. Indikujeme lumbální punkci.

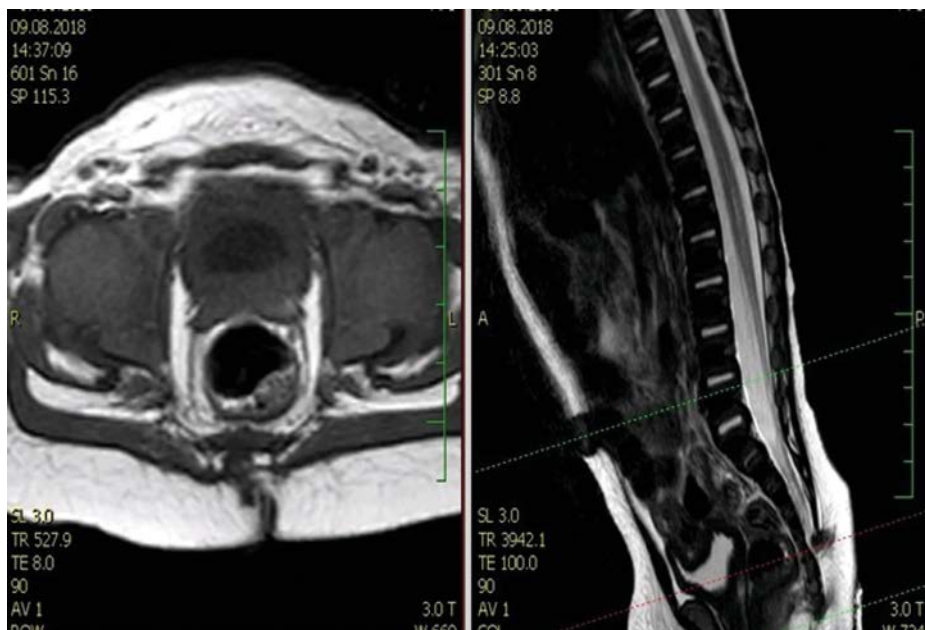
V likvoru nález serózního zánětu (Tab. 1). Chlapec empiricky zajištěn Ceftriaxonem, kultivačně *Proteus mirabilis* bez antibiotické rezistence. Na počátku léčby i během všech dalších následujících kontrol trvá nízká zánětlivá aktivita. Kvůli trvajícím horečkám přidáváme do terapie Gentamicin. 6. den terapie odstraněn PMK pro zlepšení celkového stavu pacienta. Chlapec močí spontánně.

8. den ATB terapie náhle vzniká paraparéza až plegie dolních končetin (DKK). Akutně provádíme MRI mozku a míchy s překvapivým nálezem.

Od cervikokraniálního přechodu (CC) po L5/S1 byly patrné četné splývající abscesové dutiny míchy šíře až 10 mm, maximum změn bylo v lumbálním úseku míchy. Kraniálně se velikost dutin zmenšuje. Jako vedlejší nález byl vidět výrazně naplněný močový měchýř (Obr. 2).

Opakujeme lumbální punkci, kde při prvním vpichu odebíráme bílý hnis, o etáž výš

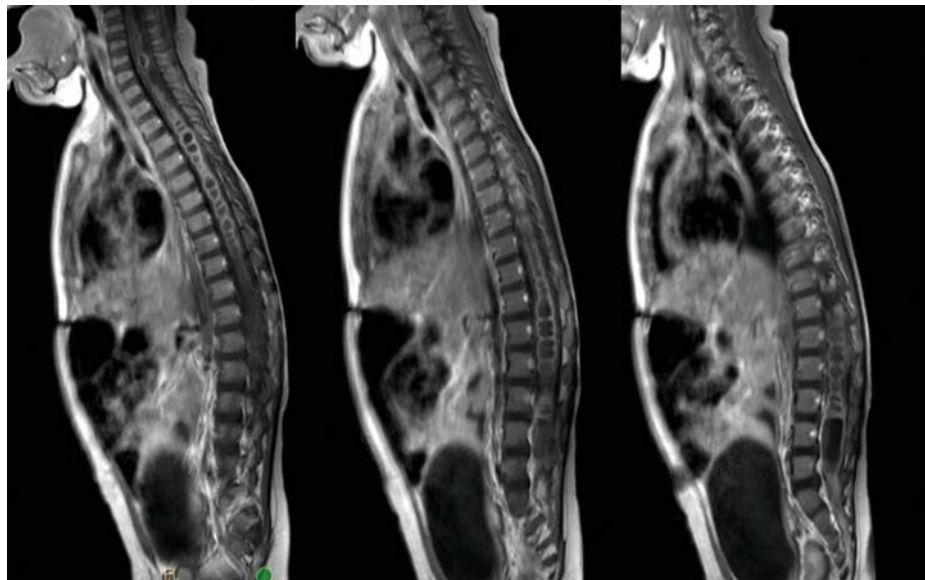
Obr. 1. První MR ve 3 měsících věku



Tab. 1. Vyšetření mozkomíšního moku

	3. 10. 2018	10. 10. 2018	5. 11. 2018
CB (mg/l)	1560	3763	472
Polymorfonukleáry (ks/3 µl)	777	456	2
Mononukleáry (ks/3 µl)	700	712	53
Leukocyty (ks/3 µl)	1477	1168	55
Erytrocyty (ks/3 µl)	1027	19200	3072
Glykorachie (mmol/l)	2,79	1,83	2,80
Laktát (mmol/l)	2,60	3,10	1,67
KEB	21,23	7,51	27,26

Obr. 2. Nález mnohočetných syringohydromyelických dutin míchy od CC přechodu pro míšní konus



poté vytéká čirý likvor (Tab. 1) (kultivačně *Peptostreptococcus species*).

Vzhledem k mimořádnému rozsahu nálezu na MRI, akutnímu ohrožení života, měníme ATB terapii na kombinaci megadávky Chloramfenikolu (100 mg/kg/den) + Metronidazol.

Krátkodobé nežádoucí účinky Chloramfenikolu během hospitalizace nepozorujeme (poškození erytropoézy s retikulocytopenií, leukopenií, trombocytopenií a poklesem hematokritu).

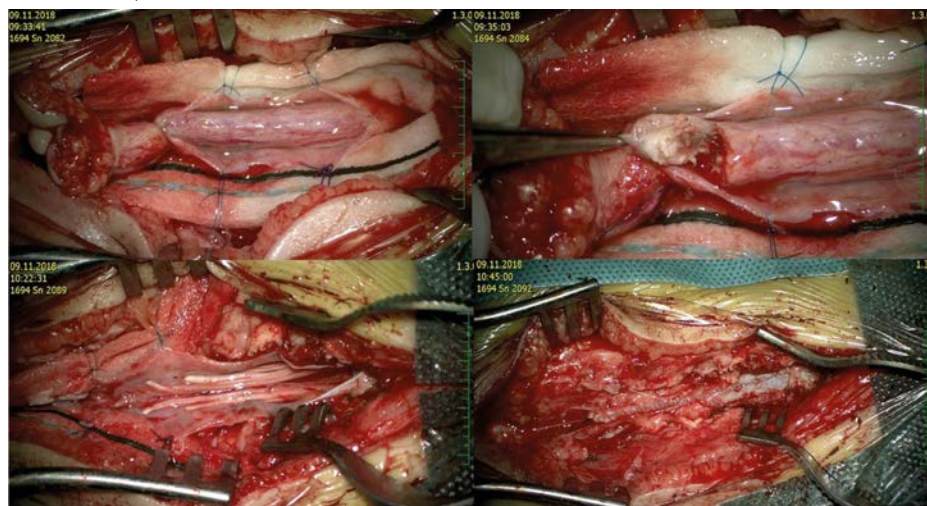
13. den této terapie ukazuje MRI výraznou regresi nálezu (Obr. 3), proto snižujeme dávku Chloramfenikolu na 75 mg/kg/den. 22. den terapie

Tab. 2. ATB terapie v číslech

	Počet dní	NÚ	Důvod změny/ léčby	Celkově dní
Ceftriaxon	9	/	Empiricky	73
Gentamicin	6	/	Eskalace terapie	
Chloramfenikol	23	/	Eskalace terapie – dávka 100 mg/den (nález abscesů na MRI)	
Metronidazol	17	/	Pokrytí anaerobní flóry	
Linezolid	18	leukopenie	Změna ATB centra po 23 dnech Chloramfenikolu	
Vankomycin	27	/	Alternativa pro NÚ	
Flukonazol	12	/	Nález kvasinky v moči	

Tab. 3. Kožní léze spojené s vrozenou dysráfií míchy a páteřního kanálu (Occult Spinal Dysraphism)

Kdy indikovat zobrazení? (MRI, UZ)	
Jistě ano	Podkožní masa, lipom Dermální sinus Atypické prohlubně (> 5 mm, > 25 mm od okraje anu) Ochlupený vstup Vaskulární léze (teleangiektázie, hemangiom) Kožní apendix, léze podobné polypům Léze podobné jizvě
Ano/Ne	Hyperpigmentace Deviace gluteální rýhy
Není potřeba	Jednoduché vklesliny (< 5 mm, < 25 mm od okraje anu) Lokalizace u kostrče

Obr. 5. Perioperační nález dermálního tumoru

překládáme dítě k zavedení epicystostomie na dětskou urologii Všeobecné fakultní nemocnici (VFN), kde mění ATB (Linezolid, Meropenem) a přidávají Flukonazol pro nález v moči.

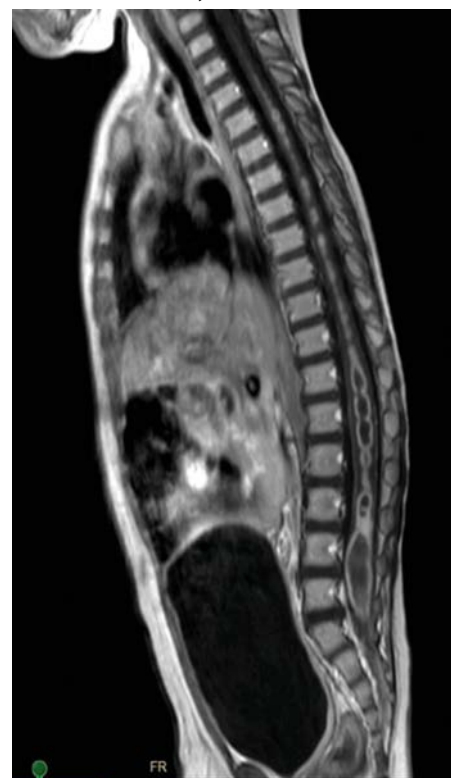
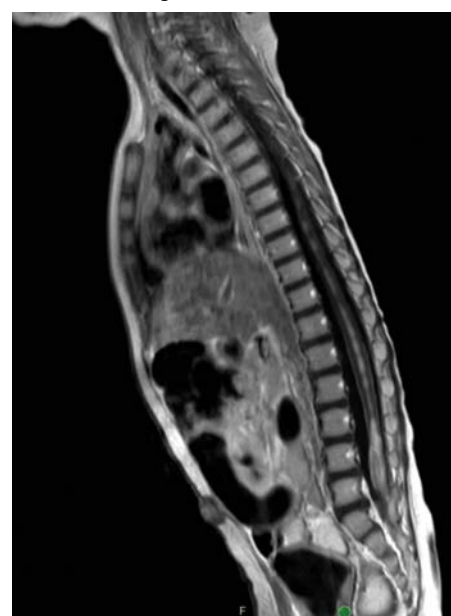
Výkon proběhl bez komplikací a pacient se navrátil na naše pracoviště po 3 dnech.

Terapii ponecháváme a časné provádíme kontrolu MR míchy a mozku (26. den léčby) – pokračuje další regres abscesů, nález přetrvává pouze v oblasti L3/4-L5/S. (Obr. 4). Kontrolní vyšetření likvoru s výrazným zlepšením (Tab. 1).

Po stabilizaci stavu neurochirurg indikuje operační revizi s radikální resekci dermálního sinu a detetheringu míchy a kořenů kaudy.

Výkon proběhl bez komplikací s nečekaným perioperačním nálezem.

Perioperační nález odhaluje, že největší absces, který byl v LS oblasti páteře, nevychází z centrálního kanálu míchy, ale z typického intradurálně uloženého dermálního tumoru (s obsahem kožních adnex) (Obr. 5). Dermoid sahal kraniálně až ke konu míchy s nejasnou hranicí,

Obr. 3. 13. den léčby Chloramfenikolem**Obr. 4.** Další regres abscesů

tudíž byla provedena pro velké riziko poškození pouze subtotální resekce.

Další pooperační průběh byl nekomplikovaný. 6 dní po resekci provedené kontrolní MRI vyšetření ukazuje mírnou regrese změn, ale nález syčení ependymu v centrálním kanálku míchy stále naznačuje aktivní zánět (Obr. 6). Pro výrazný nález leukopenie, kterou vyhodnocujeme jako nežádoucí účinek Linezolidu, měníme 18. den ATB terapii na Vankomycin + Meropenem. Zároveň pro opakovaně ne-

gativní nález v moči vysazena 12. den terapie antimykotiky.

Přehled ATB terapie viz Tab. 2.

49. den terapie je na kontrolním zobrazení míchy nález beze změn. Ukončení ATB terapie bylo v tuto chvíli svízelné. Po konzultaci pediatra, neurochirurga a radiologa se rozhodujeme ještě do dalšího MRI v terapii pokračovat.

Další zobrazení provedeno 71. den terapie, nález je neměnný. ATB terapii ukončujeme 73. den po důkladné rozvaze. Chlapec byl poté propuštěn do domácí péče s plánem kontrolních MR zobrazení (a 14 dní, a 2 měsíce, a 6 měsíců). Nadále sledován neurochirurgem, neurologem, urologem a pediatrem. Dnes u našeho pacienta přetrvává neurogenní močový měchýř t. č. s vezikostomií. Psychomotorický vývoj pokračuje – leze, postaví se oporou v 15 měsících věku. Neurologicky paraparéza lehkého stupně s akcentací vlevo a centrální hypotonický syndrom.

Diskuze

Kožní léze v sakrální krajině jsou časté drobné vrozené anomálie. Velmi často jsou to pouze kožní prohlubně, benigního vzhledu (4). Existují však klinická kritéria, která nám mohou pomoci rozhodnout se pro další vyšetření (UZ, MRI) (Tab. 3) a tím odhalit vrozenou dysráfii, kterou je třeba časně chirurgicky řešit a předejít tak komplikacím (4). S dermálním sinem v typické lumbosakrální lokalizaci může být asociována dermoidní cysta v různé lokalizaci ve vztahu k páteři a míše (extradurální, intradurální) (4).

Takto vážná komplikace dorsálního dermálního sinu je velmi vzácná. I při zcela bezpříznakovém průběhu je nutná důsledná dispenzarizace neurochirurgem, neurologem a praktickým

Obr. 6. Pooperační nález, terapie Chloramfenikolem 23 dní



Obr. 7. Poslední MRI s kompletní regresí zánětlivých změn



lékařem a časné definitivní chirurgické řešení. U našeho pacienta se nepovedlo pro riziko poškození míchy odstranit celý dermální tumor, tudíž bude dále sledován s pravidelnými kontrolami MRI. Poslední kontrola proběhla v červnu roku 2019, kde je kompletní regrese zánětlivých změn (Obr. 7). Další kontrola je naplánována za rok. Vzhledem k mikrobiologickému nálezu je pravděpodobné, že infekce byla do páteřního kanálu zavlečena při gastroenteritidě s průjmy, a to i při důsledné hygieně. Otázkou zůstává, proč takto velký dermální tumor s vnější komunikací nebyl viditelný již při prvním vyšetření MRI ve 3 měsících věku, chirurgická intervence by zcela jistě byla indikována daleko dříve.

Závěr

Kazuistika ukazuje, že i za pomoci širokého spektra vyšetřovacích metod včetně opakovaného klinického vyšetření nás v medicíně může a bude stále něco překvapovat.

MRI ve 3 měsících věku dermální tumor takové velikosti neodhalila. Proto je potřeba děti s podobným klinickým nálezem pečlivě dispenzarizovat. Dále bychom chtěli vyzdvihnout terapeutický efekt Chloramfenikolu, který v celém průběhu onemocnění sehrál významnou roli a jeho použití v dnešní pediatrii je raritní. MRI dokumentace našeho pacienta to jasně dokumentuje. Chloramfenikol má i v dnešní pediatrii své místo a v indikovaných případech se může jednat i o lék zachraňující život.

LITERATURA

1. Patwari S, Reddy BN, Kapanigowda MK, Ramesha SK, Chadaga H. Thoracic dorsal dermal sinus with secondarily infected intramedullary dermoid cyst. *Asian J Neurosurg* [serial online] 2019 [cited 2019 Aug 26]; 14: 975–977. Available from: <http://www.asianjns.org/text.asp?2019/14/3/975/258092>

2. Singh I, Rohilla S, Kumar P, Sharma S. Spinal dorsal dermal sinus tract: An experience of 21 cases. *Surg Neurol Int.* 2015;6(Suppl 17):S429–S434. Published 2015 Oct 7. doi:10.4103/2152–7806.166752

3. Sahoo RK, Tripathy P, Mohapatra D, Mohanty S. Congenital dermal sinus in mid-dorsal spine with large intramedullary

dermoid cyst in an 18-months-old child. *J Pediatr Neurosci.* 2013; 8(3): 201–203. doi:10.4103/1817–1745.123663

4. Kliegman R, Stanton B, St. Geme JW, Schor NF, Behrman RE.; Nelson textbook of pediatrics (Edition 20.) 2016; 20: 2803–2804.