

(35)

Skleroterapia malformacji żyłnej gałki ocznej u małego dziecka – opis przypadku

Sclerotherapy of ocular venous malformation in small child – case report

Anna Niwald¹, Beata Orawiec¹, Mirosława Grałek¹, Katarzyna Piasecka¹, Przemysław Przewrański²

¹ Oddział Okulistyki Dziecięcej SP ZOZ Uniwersytecki Szpital Kliniczny Nr 4 UM w Łodzi
Kierownik: dr hab. n. med. Anna Niwald

² Klinika Chirurgii i Onkologii Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego w Łodzi
SP ZOZ Uniwersytecki Szpital Kliniczny Nr 4 UM w Łodzi
Kierownik: dr hab. n. med. Ewa Andrzejewska, prof. nadzw. UM w Łodzi

Streszczenie:	Opisano przypadek czteroletniej dziewczynki z malformacją żylną gałki ocznej lewej. Po rocznym okresie obserwacji, ze względu na progresję zmiany, podjęto decyzję o leczeniu metodą sklerotyzacji z użyciem bleomycyny. Roztwór bleomycyny wstrzyknięto bezpośrednio do zmienionego naczynia, pod kontrolą wzroku. Uzyskano całkowite zamknięcie malformacji utrzymujące się w długim okresie obserwacji.
Słowa kluczowe:	malformacja żylna, gałka oczna, skleroterapia, bleomycyna, dzieci.
Summary:	We present a case of a 4-year-old girl with ocular venous malformation in her left eye. Over a one-year follow up, the symptoms progressed and sclerotherapy with bleomycin was performed. The bleomycin solution was injected directly into the abnormal vessel under visual control, which lead to a complete obliteration of malformation in a long-term follow-up.
Key words:	venous malformation, eye, sclerotherapy, bleomycin, children.

Wstęp:

Malformacje żyłne (Venous Malformations – VM) to jedne z najczęstszych anomalii naczyniowych, występują u dzieci z częstością 1: 5000–10000 urodzeń. Są to wrodzone nieprawidłowości dotyczące niskooporowych naczyń krwionośnych objawiające się powiększonymi, nieregularnymi i wypełnionymi krwią kanałami, w ścianach których nie obserwuje się nieprawidłowych podziałów komórek śródbłonka. Objawy kliniczne często pojawiają się dopiero pod koniec pierwszej dekady życia. Jest to związane ze stałym powolnym wzrostem zmienionych naczyń, proporcjonalnym do wzrostu dziecka. Zmiana może się powiększać podczas próby Valsalvy oraz w stanach fizjologicznych związanych ze wzrostem ciśnienia żylnego w obrębie głowy (takich jak np. płacz, krzyk i śmiech). Rozpoznanie VM potwierdzają badania obrazowe. Szczególnie przydatna jest ultrasonografia dopplerowska (Color Doppler Ultrasonography – USG-CD) (1). Obecnie w leczeniu VM pozapniowych – niekomunikujących się z głównymi pniami żylnymi (2, 3) – postępowaniem z wyboru mogą być leczenie chirurgiczne lub skleroterapia (2, 3). Sklerotyzacja polega na podaniu środka obliterującego do patologicznego łóżyska naczyniowego (jedno- lub kilkakrotnie). Bleomycyna należy do leków wykorzystywanych w tej terapii.

Opis przypadku

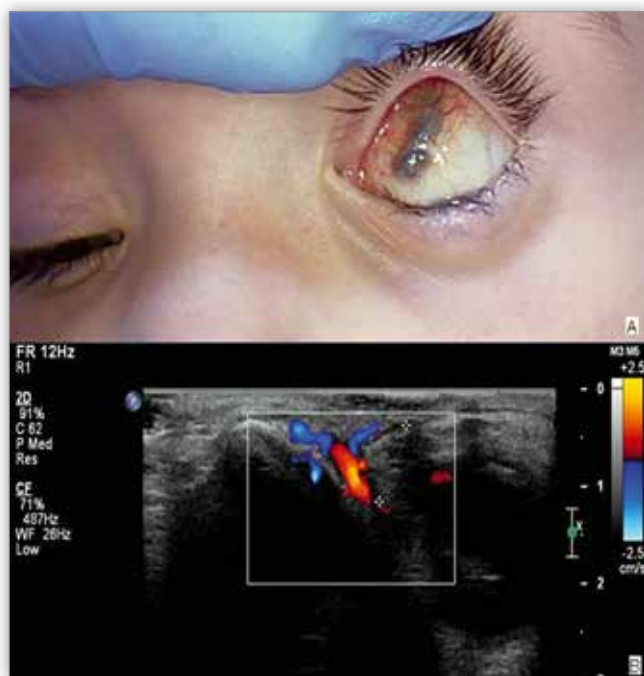
W Poradni Okulistyki Dziecięcej Uniwersyteckiego Szpitala Klinicznego w Łodzi przyjęto 4-letnią dziewczynkę z objawami „czerwonego oka” (oko lewe – OL), rodzice dziecka poinformowali, że wcześniej nie doznało ono urazu. Dziewczynka od 2 lat

była leczona z powodu cukrzycy typu 1. W obojgu oczach stwierdzono pełną ostrość wzroku i prawidłowe ciśnienia wewnątrzgałkowe. Spośród odchyłeń od normy stwierdzono rozległy wylew krwi podspojówkowy w OL dochodzący do załamka górnego. Badanie kontrolne przeprowadzone po wchłonięciu się wylewu uwidoczniło na gałce ocznej patologicznie rozdęte naczynie sinofioletowej barwy (ryc. 1a). Badanie USG-CD uwidoczniło w przestrzeni nadtwardówkowej oraz w okolicznych tkankach miękkich górnej przyśrodkowej części oczodołu lewego patologiczne naczynie o wymiarach 0,3 cm x 1,4 cm – z niskooporowym przepływem charakterystycznym dla malformacji żylnych (ryc. 1b).

Pod koniec rocznej obserwacji anomalia naczyniowa powiększyła się dwukrotnie – w badaniu USG-CD miała wymiary 0,6 cm x 2,5 cm. Narastaniu zmiany naczyniowej towarzyszyły nawrotowe dospojówkowe wylewy krwi. Dziecko zakwalifikowano do skleroterapii malformacji żyłnej z użyciem bleomycyny – zabieg w znieczuleniu ogólnym.

Lek przygotowano w warunkach sterylnych, w komorze laminarnej. Bezpośrednio przed iniekcją odprowadzono krew z patologicznego naczynia, stosując przezspojówkowy ucisk manualny wzdłuż naczynia w kierunku jego podstawy w załamku górnym. Następnie wstrzyknięto do naczynia 15 IU bleomycyny w roztworze 0,9% NaCl, utrzymując w tym czasie ucisk na jego podstawę, aby zapobiec przenikaniu leku poza obręb malformacji do krążenia ogólnego. Po skleroterapii założono opatrunek uciskowy.

W wyniku zabiegu doszło do całkowitego zamknięcia światła patologicznego naczynia. Pacjentka zniósła zabieg dobrze,



Ryc. 1. Malformacja żylna gałki ocznej przed leczeniem – a., obraz badania USG-CD malformacji żyłnej gałki ocznej – b.

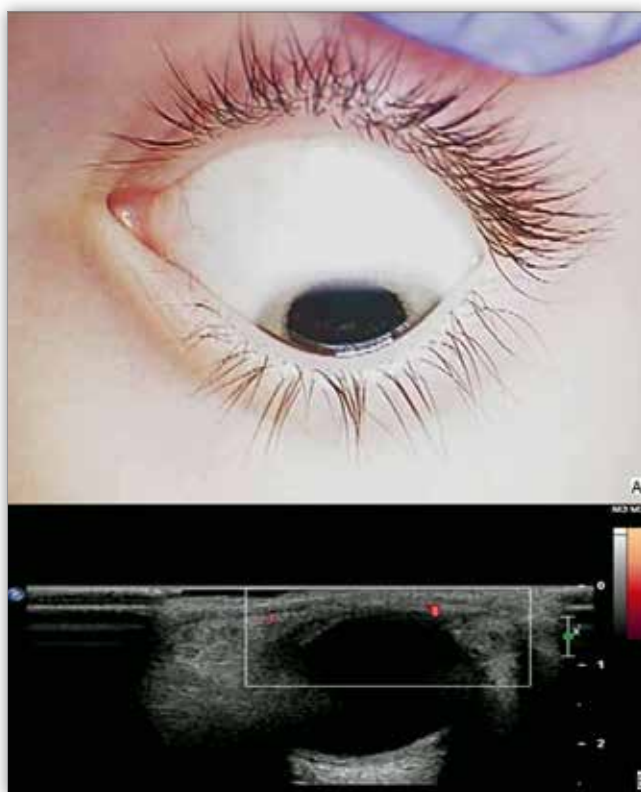
Fig. 1. Initial presentation of the ocular venous malformation – a, Colour Doppler ultrasound image of ocular venous malformation – b.

nie obserwowano żadnych powikłań ogólnych. Wystąpił jedynie powierzchowny odczyn zapalny, z przekrwieniem i obrzękiem spojówki w okolicy wstrzyknięcia leku, który ustąpił po kilkunastu dniach. W pierwszych tygodniach po przeprowadzonej skleroterapii utrzymywało się zagłębienie w twardówce odpowiadające przebiegowi uprzedniej VM (ryc. 2.).



Ryc. 2. Obraz kliniczny po tygodniu od sklerotyzacji.
Fig. 2. Clinical presentation one week following sclerotherapy.

W badaniu kontrolnym, przeprowadzonym po trzech miesiącach od zabiegu, obraz spojówki i twardówki nie odbiegał od stanu prawidłowego. W dalszych 12-miesięcznych obserwacjach klinicznych nie stwierdzono niekorzystnych miejscowych następstw skleroterapii ani wznowy procesu (ryc. 3a). Badanie USG-CD, wykonane po roku od zabiegu, nie uwidoczniało cech przepływu naczyniowego w okolicy odpowiadającej zobliterowanej VM (ryc. 3b).



Ryc. 3. Obraz kliniczny po roku od sklerotyzacji – a., obraz badania USG-CD wskazujący na brak patologicznego przepływu naczyniowego – b.

Fig. 3. Clinical outcomes one year following sclerotherapy – a, Colour Doppler ultrasound image showing no flow within the abnormal vessels – b.

Omówienie

Bleomycyna jest antybiotykiem cytotoksycznym, który poprzez hamowanie syntezy DNA powoduje obumieranie szybko dzielących się komórek. Ponieważ bleomycyna silnie oddziałuje sklerotyzująco na komórki śródbłonna naczyń, jest wykorzystywana w leczeniu różnych rodzajów anomalii naczyniowych, w tym malformacji żylnych (4).

Prezentowany przez nas przypadek endoskleroterapii malformacji żyłnej gałki ocznej u dziecka jest pierwszym opisem zastosowania bleomycyny w obrębie oczodołu. Dostępne w literaturze medycznej publikacje na ten temat dotyczą wykorzystania bleomycyny w leczeniu malformacji usytuowanych poza narządem wzroku (4–8). Wskazują one na wysoką skuteczność i bezpieczeństwo iniekcji bleomycyny w leczeniu VM w obrębie głowy, tułowia i kończyn. U naszej pacjentki z pozapniową malformacją żylną o typie ogniskowanym w przestrzeni okołogałkowej wystarczające było jednorazowe donaczyniowe podanie leku, aby efekt terapeutyczny był optymalny i trwały. Nie obserwowano żadnych poważnych działań niepożądanych, systemowych, wewnątrzoczdolowych i gałkowych, które wiązałyby się z cytotoksycznością leku.

Wnioski

To, że bleomycynę można bezpiecznie stosować w leczeniu VM umiejscowionych w strukturach oczodołu, ma szczególnie istotne znaczenie z uwagi na ważne w procesie widzenia elementy anatomiczne, które znajdują się w jego obrębie. Opisany

przez nas przypadek, chociaż jednostkowy, zachęca do stosowania skleroterapii z użyciem bleomycyny u dzieci z malformacjami żylnymi umiejscowionymi w strukturach oczodołu.

Piśmiennictwo:

1. Vaidya S, Cooke D, Kogut M, Stratil PG, Bittles MA, Sidhu M: *Imaging and Percutaneous Treatment of Vascular Anomalies*. Semin Intervent Radiol. 2008; 25: 216–233.
2. Legiehn GM, Heran M: *Venous malformations: classification, development, diagnosis, and interventional radiologic management*. Radiol Clin N Am. 2008; 46: 545–597.
3. Rautio R, Laranne J, Kahara V, Saarinen J, Keski-Nisula L: *Long-term results and quality of life after endovascular treatment of venous malformations in the face and neck*. Acta Radiol. 2004; 45: 738–745.
4. Muir T, Kirsten M, Fourie P, Dippenaar N, Ionescu GO: *Intralesional bleomycin injection (IBI) treatment for haemangiomas and congenital vascular malformations*. Pediatr Surg Int. 2004; 12: 766–773.
5. Hou R, Guo J, Hu K, Yang Y, Wang L, Kong L, et al.: *A clinical study of ultrasound-guided intralesional injection of bleomycin A5 on venous malformation in cervical-facial region in China*. J Vasc Surg. 2010; 51: 940–945.
6. Spence J, Krings T, terBrugge KG, da Costa LB, Agid R: *Interventional percutaneous sclerotherapy for facial venous malformations: subjective clinical and objective MR imaging follow-up results*. Am J Neuroradiol. 2010; 31: 955–960.
7. Sainsbury DCG, Kessell G, Fall AJ, Muir T: *Intralesional bleomycin injection treatment for vascular Birthmarks: a 5-year experience at a single United Kingdom Unit*. Plast Reconstr Surg. 2010; 127: 2031–2044.
8. Zhang J, Li HB, Zhou SY, Chen KS, Niu CQ, Tan XY, et al.: *Comparison between absolute ethanol and bleomycin for the treatment of venous malformation in children*. Exp Ther Med. 2013; 6: 305–309.

Praca wpłynęła do Redakcji 13.01.2015 r. (1508)
Zakwalifikowano do druku 27.08.2015 r.

Adres do korespondencji (Reprint requests to):

dr hab. n. med. Anna Niwald
Oddział Okulistyki Dziecięcej SP ZOZ
Uniwersytecki Szpital Kliniczny Nr 4 UM w Łodzi
ul. Sporna 36/50
91-738 Łódź
e-mail: annaniwald@op.pl

Polskie Towarzystwo Okulistyczne
e-mail: pto@pto.com.pl

Polskie Towarzystwo Okulistyczne
www.pto.com.pl