

DOI:10.33529/ANGIO2020105

АНЕВРИЗМА ПЛЕЧЕВОЙ АРТЕРИИ У НОВОРОЖДЕННОГО

ОСИПОВ Д.В.¹, НУРМЕЕВ И.Н.^{1,2}¹ Детская республиканская клиническая больница Минздрава Республики Татарстан,² Казанский государственный медицинский университет Минздрава России, Казань, Россия

В статье представлен случай успешного хирургического лечения редкого заболевания – прогрессирующей врожденной истинной аневризмы плечевой артерии у новорожденного. Симптомы впервые были отмечены в возрасте 7 дней. В дальнейшем было отмечено увеличение размеров аневризмы, появление неврологических симптомов, нарушение функции конечности. Обследование ребенка включало в себя клинический осмотр и ультразвуковое исследование. Выполнена операция удаления аневризмы с восстановлением плечевой артерии анастомозом «конец в конце». Окончательно диагноз был верифицирован только при гистологическом исследовании. Представлен обзор литературы, отражающий редкость патологии, проблемы диагностики и лечебной тактики. Расширение сосуда представляло собой истинную аневризму со всеми тремя слоями сосуда в стенке и относилась к классу детских врожденно-идиопатических артериальных аневризм вне связи с дегенерацией сосудистой стенки или сердечно-сосудистой патологией.

Ключевые слова: аневризма, новорожденный, ребенок, диагностика, лечение.

ВВЕДЕНИЕ

Врожденные аневризмы артерий у детей крайне редки. Заболевание мало известное и условно может быть отнесено к редким заболеваниям. Можно говорить об описании единичных наблюдений в мировой литературе. Davis F. с соавт. (2016) приводят данные University of Michigan Medical Center, сообщая о 7 случаях аневризм артерий верхних конечностей (из них 3 – плечевая артерия) с самым младшим ребенком в возрасте 4 месяца. Им же приводятся данные о случае лечения аневризмы локтевой артерии у ребенка двухмесячного возраста [1]. Sarkar R. с соавт. сообщили о 4 аневризмах артерий верхней конечности (из них одна – плечевая артерия ребенка двухнедельного возраста) [2]. В работах других авторов сообщается об упоминании в мировой литературе всего от 11 до 14 различных клинических случаев у детей в возрасте до 12 лет [3–5]. В русскоязычной литературе упоминаний о подобных случаях не было.

Развитие детских аневризм может быть связано с такими сопутствующими процессами, как инфек-

ции, травмы, соединительнотканые болезни, артерииты или врожденные сосудистые мальформации [3, 1]. Лишь 5% аневризм артерий у детей встречаются в артериях верхних конечностей и большинство из них связаны с системными заболеваниями [4].

В связи с редкостью патологии представляем клинический случай диагностики и успешного хирургического лечения истинной врожденной прогрессирующей аневризмы левой плечевой артерии у новорожденного.

Клинический случай

Ребенок, девочка, родилась доношенной от первой беременности, беременность протекала без отклонений. В возрасте 7 дней родители обратили внимание на опухолевидное образование левой верхней конечности в области локтевого сгиба. Семейный анамнез – сосудистых мальформаций и патологии артерий в семье отмечено не было.

Проведено УЗИ мягких тканей (возраст 7 дней). Выявлено округлое опухолевидное образование



Рис. 1. Внешний вид левой конечности при поступлении в стационар. Отмечается деформация плечевой области в проекции аневризмы

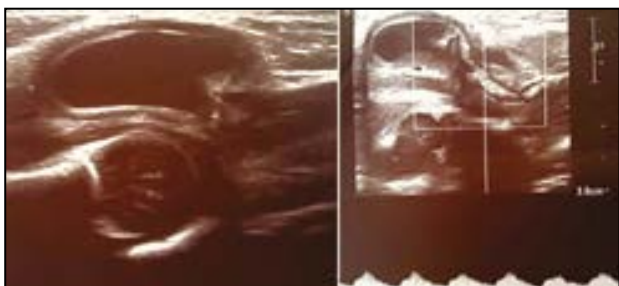


Рис. 2. Ультразвуковое исследование плечевой артерии перед операцией



Рис. 3. Внешний вид аневризмы плечевой артерии после выделения



Рис. 4. Аневризма плечевой артерии слева после иссечения

в нижней трети левого плеча, диаметром 1 см, объемом 1.5 куб. см. Четкие неровные контуры, плечевая артерия оттеснена кпереди. Экстренная патология исключена. На тот момент данных о сосудистом характере новообразования не получено. Был предположен диагноз «гигрома». По месту жительства начато амбулаторное наблюдение за ребенком.

Спустя месяц, в возрасте 1 месяц 1 неделя – повторное обследование. Отмечен рост опухоли, появилась пульсация, определяемая при пальпации. Консультация детского сосудистого хирурга. Выявлена округлая, эластичная, с четкими контурами пульсирующая опухоль в области нижней трети левого плеча и локтевого сгиба. Дополнительно выявлен отек предплечья и кисти слева, снижение двигательной активности конечности, ограничение сгибательной функции 1 и 2 пальцев кисти. Пульс на артериях левого предплечья ослаблен (рис. 1).

Проведено УЗИ в режиме цветового доплеровского картирования и энергетического Доплера. Установлен диагноз аневризмы плечевой артерии слева. При обследовании выявлено образование 20x11 мм, анэхогенное, неправильной формы, с четкими ровными контурами, с толстой капсулой толщиной 1.5 мм. Образование расположено по задне-медиальной стенке плечевой артерии, оттесняя артерию вверх. Визуализированы проксимальный и дистальный отрезки левой плечевой артерии диаметром чуть более 1 мм. Размер соустья между артерией и полостью аневризмы 1.1 мм, скорость кровотока в соустье 3.0 м/с. В полости аневризмы низкоскоростной турбулентный кровоток. Плечевая артерия ниже устья аневризматического мешка распластана над опухолью и сдавлена. Кровоток по артерии снижен. Дистальнее аневризмы кровоток с характеристиками коллатерального кровотока (рис. 2).

Таким образом, было отмечено увеличение размеров образования в 2 раза. Возникли признаки ишемии конечности, функциональные нарушения.

В возрасте 2 месяца ребенок был госпитализирован в республиканскую больницу, отделение сердечно-сосудистой хирургии. Выставлен диагноз: врожденная аневризма левой плечевой артерии. Ребенок был подготовлен к операции.

В возрасте 2 месяца проведена реконструктивная операция. Анестезия – общая, наркоз. S-образный разрез в левой локтевой ямке. Выделена пульсирующая, округлой формы опухоль 23 мм в диаметре и длиной 35 мм. Проведено выделение плечевой артерии, аневризматического мешка (рис. 3).

Аневризма иссечена (рис. 4.), дефект стенки артерии после удаления аневризмы и мобилизации краев сосуда составил 15 мм. Выполнен анастомоз по типу «конец в конец» плечевой артерии диаметром 1.2 мм, нить 8/0. После наложения анастомоза пульсация плечевой артерии проводилась на всем протяжении сосуда. Для достижения технической возможности формирования анастомоза «конец в конец» была выполнена послеоперационная иммобилизация в положении сгибания конечности 90°.

Гистологическое исследование удаленного материала. Фрагмент стенки сосуда с разрыхлением tunica intima и tunica media, в участках десквамации эндотелия сформирован тромб с признаками организации. В зоне впадения в аневризму у приводящей артерии утолщение tunica media по типу хряща; в tunica media продуктивная инфильтрация и васкулит мелких сосудов. Стенки аневризмы состоят из тех же слоев, что и стенка артерии, что свидетельствует в пользу истинного характера аневризмы (рис. 5).

Диагноз подтвержден: истинная идиопатическая (врожденная) аневризма плечевой артерии слева.

Послеоперационный период. Проводилась антикоагулянтная терапия нефракционированным гепарином в течение 13 дней. Анальгетики 3 дня после операции. Сосудорасширяющие препараты – 5 дней после операции. С 14 дня были назначены антиагрегантные препараты (ацетилсалициловая кислота) сроком 3 мес.

УЗИ (через 14 дней после операции). Диаметр плечевой артерии в области анастомоза составляет 0,8 мм, ускорение кровотока по нему до 1.2–1.6 м/с. Кровоток по плечевой артерии удовлетворительный, магистрального типа (рис. 6).

Ребенок находится на амбулаторном наблюдении. Последний осмотр в возрасте 1 года. Левая верхняя конечность физиологической окраски, теплая, пульсация артерий предплечья удовлетворительная. По данным УЗИ подтверждена проходимость левой плечевой артерии. Диаметр артерии в области анастомоза увеличился до 1.8 мм. Неврологических отклонений нет (рис. 7).

ОБСУЖДЕНИЕ

Врожденные аневризмы артерий верхних конечностей у детей представляют собой редкую патологию. Лишь единичные публикации в мировой литературе посвящены их выявлению и лечению. Предложена клиничко-патологическая классификация артериальных аневризм у детей по Sarkar R. (1991). Согласно классификации, аневризмы у детей

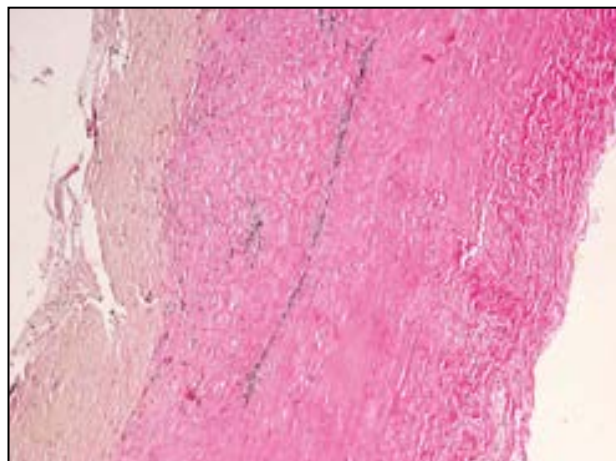


Рис. 5. Микроскопическое исследование стенки аневризмы. Окраска гематоксилин-эозин, X 20. Микрофотография X 0,63

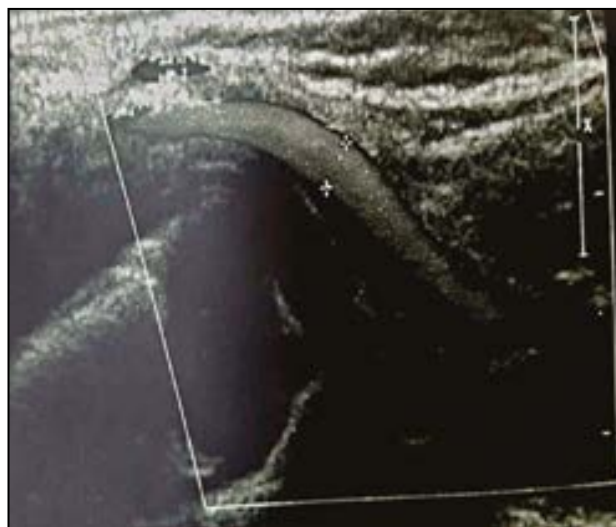


Рис. 6. Ультразвуковое исследование. Плечевая артерия проходима



Рис. 7. Внешний вид конечности спустя год после операции

подразделяются на 9 классов. I класс – связаны с артериальной инфекцией, II класс – гигантоклеточный аортоартериит, III класс – аутоиммунное соединительнотканное заболевание, IV класс – болезнь Kawasaki, V класс – болезнь Элекса–Данлоса или синдром Марфана, VI класс – другие формы невоспалительной дегенерации средней оболочки, VII класс – артериальная дисплазия, VIII класс –

врожденно-идиопатические факторы и IX класс – ложная аневризма в связи с экстравазальными причинами [2]. Согласно классификации Sakkar R. (1991), описанный случай относится к классу VIII – у ребенка артериальная аневризма врожденно-идиопатического характера.

На сегодня совокупное количество описанных случаев у пациентов младше 12 лет не превышает двух десятков случаев, а случаи успешного выявления и лечения аневризм плечевой артерии у новорожденных уникальны. Как правило, педиатрические аневризмы возникают на фоне одного из фонных состояний.

Мнения касательно сроков хирургического лечения разнятся. Часть авторов полагает, что возможна тактика наблюдения с последующей хирургической коррекцией в более старшем возрасте для всех случаев неосложненного течения [3]. Другие специалисты считают, что операция показана сразу по установке диагноза во избежание ишемии конечности [6]. В описанном клиническом случае было прогрессирование заболевания с появлением и нарастанием неврологической симптоматики за счет сдавления нервов аневризмой, венозной недостаточности конечности в виде отека, ишемии и нарушения функции конечности.

Приведенный в статье опыт хирургического лечения характеризуется несколькими особенностями. Диагностический поиск отличался неявным

характером сосудистого генеза выявленной опухоли на раннем этапе заболевания. Это создало трудности для ранней установки верного диагноза.

В то же время аневризма представляла собой истинную аневризму со всеми тремя слоями сосуда в стенке и относилась к классу детских врожденно-идиопатических артериальных аневризм вне связи с дегенерацией сосудистой стенки или сердечно-сосудистой патологией.

В описанном случае удалось выполнить резекцию с анастомозом, избежав необходимости в протезировании артерии. Вмешательство потребовало микрохирургической техники работы с сосудом; для выполнения анастомоза «конец в конец» потребовалась иммобилизация конечности в вынужденном положении.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Несмотря на редкость заболевания, своевременное и адекватное хирургическое лечение аневризм артерий конечностей у детей требует настороженности врачей первичного звена. Хирургическое лечение возможно в условиях специализированного стационара. Дальнейшее наблюдение за ребенком показало увеличение диаметра сосуда соответственно росту организма.

Конфликт интересов отсутствует.

BRACHIAL ARTERY ANEURYSM IN A NEONATE

OSIPOV D.V.¹, NURMEEV I.N.^{1,2}

¹ Children's Republican Clinical Hospital of the Ministry of Health of the Republic of Tatarstan,

² Kazan State Medical University of the RF Ministry of Public Health, Kazan, Russia

Presented in the article is a clinical case report concerning successful surgical treatment of a rare disease – a progressing congenital true brachial artery aneurysm in a newborn girl. The symptoms were first noted at the age of 7 days, later on followed by enlargement of the aneurysm, appearance of neurological symptoms, and impaired function of the extremity. The infant was subjected to clinical examination and ultrasonographic study, followed by surgical removal of the aneurysm and restoration of the brachial artery by an «end-to-end» anastomosis. The diagnosis was finally verified only at histological examination. Also contained in the article is a review of the literature underlining that paediatric arterial aneurysms are extremely uncommon, as well as discussing the problems of diagnosis and therapeutic policy. The dilatation of the vessel turned out to be a true aneurysm with all three layers of the vessel in the wall and belonged to the class of paediatric congenital idiopathic arterial aneurysms unassociated with degeneration of the vascular wall or cardiovascular pathology.

Key words: aneurysm, neonate, infant, diagnosis, treatment.

INTRODUCTION

Congenital arterial aneurysms in children are extremely uncommon. This pathology is little-known and may conventionally be referred to rarely encountered diseases. Only sporadic case reports have been described in the world literature. Davis F., et al. (2016) reported the data of the University of Michigan Medical Center, describing 7 cases of aneurysms of arteries of upper extremities (of these, 3 cases concerning the brachial artery), with the youngest infant aged 4 months old. The same authors presented the data concerning a case report of treating a radial artery aneurysm in a two-month-old infant [1]. Sarkar R., et al. reported four cases of upper-limb aneurysms (with one of them being the brachial artery in a two-week-old infant) [2]. Other authors report only from 11 to 14 various clinical cases in the world literature in children less than 12 years old [3–5]. In the Russian-language literature no similar cases have been reported.

The development of paediatric aneurysms may be associated with such accompanying processes as infections, injury, connective-tissue diseases, arteritis or congenital vascular malformations [3, 1]. Only about 5% of arterial aneurysms in infants are located in the upper extremity and the majority of them are typically associated with systemic diseases [4].

Given exceptional rarity of the pathology, we present a clinical case report concerning diagnosis and successful surgical treatment of a true congenital progressing brachial artery aneurysm in a newborn infant.

Case report

Our patient was a girl born prematurely of the first pregnancy, with the gestation period being free from deviations. At the age of 7 days, her parents paid attention to a swollen mass in her left upper extremity in the area of the bend of the elbow. Family history: neither vascular malformations nor arterial pathology in the family were revealed.

The girl was subjected to ultrasonographic examination of soft tissues (age 7 days), revealing a rounded swollen mass in the lower third of the left shoulder, measuring 1 cm in diameter and 1.5 cm³ in volume, with clear-cut uneven contours and the brachial artery pushed anteriorly. Emergency pathology was excluded. At that moment no data on the vascular origin of the morbid growth were obtained. A diagnosis of «hygroma» was suggested. Outpatient follow-up of the girl was initiated at the place of residence.

One month later, at the age of five weeks she was subjected to repeat examination showing growth of the swelling, with the appearance of pulsation felt on palpation. She was consulted by a paediatric vascular surgeon and diagnosed as having a rounded, elastic, clear-contoured pulsating mass in the area of the lower third of the left shoulder and bend of the arm, with additionally revealed oedema of the forearm and the hand on the left, decreased motion activity of the limb, with limited thumb and index finger flexion and the pulse on the arteries of the left forearm weakened (Fig. 1).



Fig. 1. Appearance of the left limb at admission to hospital, showing defiguration of the brachial area in the projection of the aneurysm

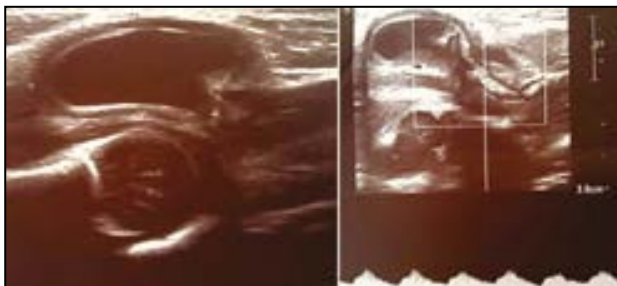


Fig. 2. Ultrasonographic examination of the brachial artery prior to surgery

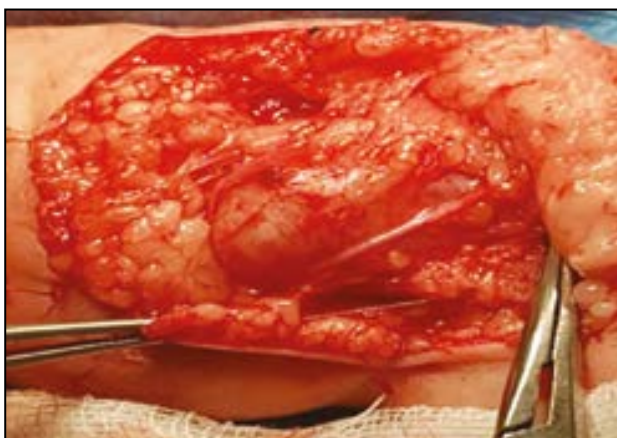


Fig. 3. Appearance of the brachial artery aneurysm after exposure



Fig. 4. Brachial artery aneurysm on the left after excision

Ultrasonographic examination was performed in the mode of colour Doppler mapping and energy Doppler. The diagnosis of a brachial artery aneurysm on the left was established. Examination revealed a 20x11 mm swollen mass, unechogenic, of irregular shape, with clear-cut smooth contours, with a 1.5-mm-thick capsule. The swelling was located along the posterior-medial wall of the brachial artery, pushing the artery upwards. Visualized were the proximal and distal portions of the left brachial artery, measuring slightly more than 1 mm in diameter. The size of the ostium between the artery and the aneurysmatic cavity was 1.1 mm, with the blood flow velocity in the ostium measuring 3.0 m/s. In the cavity of the aneurysm there was a low-speed turbulent blood flow. The brachial artery below the ostium of the aneurysmatic sac was flattened above the swelling and compressed. The blood flow through the artery was lowered. The blood flow distal to the aneurysm was with characteristics of collateral blood flow (Fig. 2).

Thus, a 2-fold increase in the size of the swelling was observed, accompanied and followed by evidence of limb ischaemia and functional impairments.

At the age of 2 months, the girl was hospitalized to the Department of Cardiovascular Surgery of the Republican Hospital, with the following diagnosis made: a congenital left brachial artery aneurysm. The infant was prepared for the operation.

At the age of 2 months she underwent reconstructive operation, under general anaesthesia, narcosis. An S-shaped incision in the left ulnar fossa was made. Exposed was a pulsating, round-shaped swelling measuring 23 mm in diameter and 35 mm in length. The brachial artery and the aneurysmatic sac were isolated (Fig. 3).

The aneurysm was incised (Fig. 4), with the length of the defect of the arterial wall after removal of the aneurysm and mobilization of the vessel's edges amounting to 15 mm. An «end-to-end» anastomosis of the brachial artery measuring 1.2 mm in diameter was applied, using thread 8/0. After the anastomosis was established the pulsation of the brachial artery was conducted along the whole length of the vessel. The technical possibility of forming the «end-to-end» anastomosis was achieved by performing postoperative immobilization in the position of the limb bent at 90°.

Histological examination of the removed material. A fragment of the vessel's wall with loosening of the tunica intima and tunica media, in the portions of endothelial desquamation there formed a thrombus with signs of organization. In the zone of the confluence into the aneurysm in the vicinity of the afferent artery there was cartilage-type thickening

of the tunica media, with the tunica media containing infiltration and vasculitis of small vessels. The walls of the aneurysm consisted of the same layers as the arterial wall, thus strongly suggesting the true nature of the aneurysm (Fig. 5).

The following diagnosis was confirmed: a true idiopathic (congenital) left brachial artery aneurysm.

The postoperative period. Anticoagulation therapy with unfractionated heparin was carried out for 13 days. Analgesics for 3 postoperative days. Vasodilators for 5 days postoperatively. From postoperative day 14, antiaggregant agents (acetylsalicylic acid) were prescribed for 3 months.

Ultrasonographic examination (14 days after the operation). The diameter of the brachial artery in the area of the anastomosis amounted to 0.8 mm, with the acceleration of blood flow through it up to 1.2–1.6 m/s and the blood flow through the brachial artery satisfactory, of the main type (Fig. 6).

The girl is on outpatient follow-up. The last examination was at 1 year of age, demonstrating that the left upper extremity was of physiological colour, warm, with the pulsation of the arteries of the forearm satisfactory. The findings of the ultrasonographic examination confirmed patency of the left brachial artery. The diameter of the artery in the area of the anastomosis increased to 1.8 mm. There were no neurological deviations (Fig. 7).

DISCUSSION

Congenital aneurysms of arteries of the upper extremities in children appear to be exceptionally uncommon. Only sporadic publications in the world literature have been devoted to their detection and treatment. A clinicopathological classification of arterial aneurysms in children was suggested by Sarkar R. (1991). According to this classification, aneurysms in children are subdivided into 9 classes. Class I – aneurysms associated with arterial infection, class II – giant-cell aortoarteritis, class III – autoimmune connective tissue disease, class IV – Kawasaki's disease, class V – Ehlers–Danlos syndrome or Marfan's syndrome, class VI – other forms of noninflammatory medial degeneration, class VII – arterial dysplasias, class VIII – congenital-idiopathic factors, as well as class IX – false aneurysms associated with extravascular events causing vessel wall injury or disruption [2]. According to the classification of Sarkar R. (1991), the case described herein belongs to class VIII, with the infant diagnosed as having an arterial aneurysm of congenital-idiopathic factors.

Currently, the cumulative number of the described case reports concerning patients less than 12 years old does not exceed two dozen, and the cases of successful detection and treatment of brachial artery aneurysms

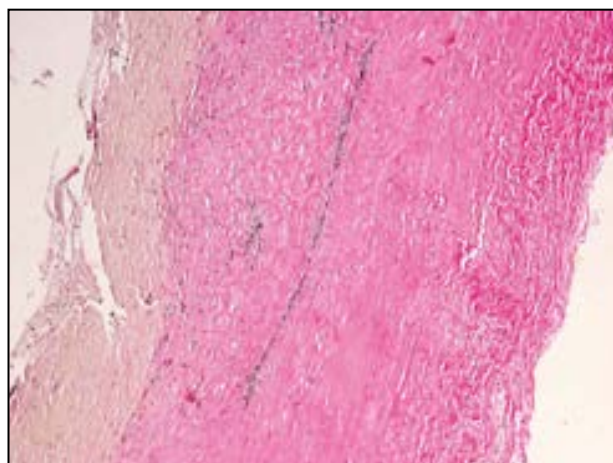


Fig. 5. Microscopic study of the aneurysmal wall. Haematoxylin and eosin stain, X 20. Microphotograph X 0.63

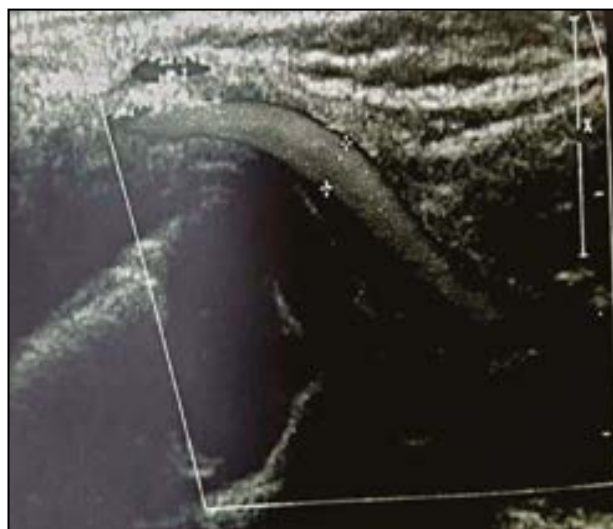


Fig. 6. Ultrasonographic examination. The brachial artery is patent



Fig. 7. Appearance of the limb one year after the operation

in newborn infants are unique. As a rule, paediatric aneurysms occur in the presence of one of background conditions.

Opinions concerning the terms of surgical treatment differ. Some authors consider that complications of “true” brachial artery aneurysms are uncommon and children who have them can be safely followed up for several years to permit growth of the artery before aneurysm resection. [3]. Other specialists suggest that

surgical intervention for upper extremity aneurysms should be initiated without delay in order to prevent extremity ischemia and amputation [6]. In the described clinical case there was progression of the disease with the appearance of and an increase in neurological symptomatology due to nerve compression by the aneurysm, venous insufficiency of the limb in the form of oedema, ischaemia and dysfunction of the extremity.

The experience of surgical treatment described in the article is characterised by several peculiarities. The diagnostic search was distinguished by uncertainty as to the vascular genesis of the detected swelling at the early stage of the disease, thus creating difficulties for early making an accurate diagnosis.

At the same time the aneurysm was a true aneurysm with all three layers of the vessel in the wall and belonged to the class of paediatric congenital-idiopathic arterial aneurysms unassociated with degeneration of the vascular wall or cardiovascular pathology.

In the described case we managed to successfully perform resection with an anastomosis, having avoided the need for prosthetic reconstruction of the artery. The intervention required a microsurgical technique of handling the vessel; to perform an «end-to-end» anastomosis required immobilization of the limb in the forced position.

CONCLUSION

Despite rarity of the pathology, timely and adequate

surgical treatment of aneurysms of arteries of limbs in infants requires caution of primary healthcare physicians. Surgical treatment is possible in conditions of a specialised hospital. Further follow up of the infant demonstrated an increase in the diameter of the vessel appropriately for the growth of the body.

Conflict of interest: none declared.

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

1. *Davis F.M., Eliason J.L., Ganesh S.K., et al.* Pediatric nonaortic arterial aneurysms. *J. Vasc. Surg.* 2016; 63: 466–476.
2. *Sarkar R., Coran A.G., Cilley R.E., et al.* Arterial aneurysms in children: clinicopathologic classification. *J. Vasc. Surg.* 1991; 13(1): 47–56.
3. *Jones T.R., Frusha J.D., Stromeyer F.W.* Brachial artery aneurysm in an infant: case report and review of the literature. *J. Vasc. Surg.* 1988; 7(3): 439–442.
4. *Gangopadhyay N., Chong T., Chhabra A., et al.* Brachial artery aneurysm in a 7-month old infant: case report and literature review. *Plast. Reconstr. Surg. Glob Open.* 2016; 4: 625.
5. *Ghazanfar A., Asghar A., Khan N., Abdullah S.* True brachial artery aneurysm in a child aged 2 years. *BMJ Case Rep.* 2016.
6. *Bahcivan M., Yuksel A.* Idiopathic true brachial artery aneurysm in a nine-month infant. *Interact. Cardiovasc. Thorac. Surg.* 2009; 8(1): 162–163.