© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2020

СЛУЧАЙ ВТОРИЧНОГО БАКТЕРИАЛЬНОГО МЕНИНГИТА НА ФОНЕ ТРАНСЭТМОИДАЛЬНОГО МЕНИНГОЭНЦЕФАЛОЦЕЛЕ

Рамазанов Г.Р., Шевченко Е.В., Степанов В.Н., Талыпов А.Э., Петриков С.С.

Государственное бюджетное учреждение здравоохранения «Научно-исследовательский институт скорой помощи им. Н.В. Склифосовского Департамента здравоохранения г. Москвы», 129090, Москва, Россия

Резюме. *В статье представлен клинический случай вторичного бактериального менингита у пациентки с редко встречающейся у взрослых патологией черепа — менингоэнцефалоцеле. Обсуждены особенности течения заболевания, диагностики и лечения. Менингоэнцефалоцеле — это пролабирование мозговых оболочек с веществом головного мозга через дефект черепа. Большинство случаев данного заболевания относится к порокам развития, выявляемым в детском возрасте. У взрослых менингоэнцефалоцеле может быть как следствием травмы или ятрогении, так и заболеванием с неустановленной этиологией. В этом случае говорят о спонтанном менингоэнцефалоцеле. Причиной возникновения данной патологии в настоящее время считают влияние повышенного внутричерепного давления на «уязвимые» участки черепа: диафрагму турецкого седла, стенки клиновидной пазухи, решетчатую пластинку. Другим фактором, вероятно, влияющим на возникновение менингоэнцефалоцеле, является хирургическое лечение внутричерепной гипертензии. Назоликворея — наиболее частый симптом, служащий причиной обращения за медицинской помощью у пациентов с энцефалоцеле. У 33% обратившихся диагностируют менингит. Нейровизуализация играет ключевую роль в диагностике энцефалоцеле. Компьютерная томография головного мозга позволяет выявить дефект кости черепа. Лептоменингеальное накопление контрастного агента на Т1-взвешенных изображениях при магнитно-резонансной томографии указывает на воспаление мозговых оболочек у пациента с клинической картиной менингита. Лечение энцефалоцеле — хирургическое. В клиническом случае, представленном в данной статье, у пациентки с указанием на окклюзионную гидроцефалию и хирургическое лечение коллоидной кисты в анамнезе диагностирован бактериальный менингит. При помощи компьютерной томографии головы выявлен дефект решетчатой кости и менингоэнцефалоцеле. Представлены радиологические признаки менингоэнцефалоцеле и менингита по данным магнитно-резонансной томографии у данной пациентки. Пациентке было выполнено двухэтапное хирургическое лечение с применением эндоскопической методики и краниотомии. Спустя четыре года после операции были оценены радиологическая картина и исход заболевания.*

Ключевые слова: менингоцеле, энцефалоцеле, менингоэнцефалоцеле, бактериальный менингит.

Для цитирования: Рамазанов Г.Р., Шевченко Е.В., Степанов В.Н., Талыпов А.Э., Петриков С.С. Случай вторичного бактериального менингита на фоне трансэтмоидального менингоэнцефалоцеле. *Российский неврологический журнал.* 2020;25(6):35–39. DOI 10.30629/2658-7947-2020-25-6-35-39

Для корреспонденции: Шевченко Е.В., e-mail: shevchenkoev@sklif.mos.ru

Информация об авторах

Рамазанов Г.Р., https://orcid.org/0000-0001-6824-4114; e-mail: ramazanovgr@sklif.mos.ru
Шевченко Е.В., https://orcid.org/0000-0001-9750-3509; e-mail: shevchenkoev@sklif.mos.ru
Степанов В.Н., https://orcid.org/0000-0003-0007-8054; e-mail: stepanovvn@sklif.mos.ru
Талыпов А.Э., https://orcid.org/0000-0002-6789-8164; e-mail: dr.talypov@mail.ru
Петриков С.С., https://orcid.org/0000-0003-3292-8789; e-mail: petrikovss@sklif.mos.ru

A CASE OF SECONDARY BACTERIAL MENINGITIS AGAINST THE BACKGROUND OF TRANSETHMOIDAL MENINGOENCEPHALOCELE

Ramazanov G.R., Shevchenko E.V., Stepanov V.N., Talypov A.E., Petrikov S.S.

State Budgetary Health Institution of Moscow “Research Institute of Emergency Care named after Sklifosovsky N.V., Moscow Board of Health“, Moscow, Russia

Abstract. *The article represents a clinical case of secondary bacterial meningitis in a patient with meningoencephalocele, craniopathy rarely found in adults. The features of the course of the disease, diagnosis and treatment are discussed. Meningoencephalocele is a prolapse of the arachnoid membrane with brain substance due to craniopathy. Most cases of this disease are related to malformations detected in childhood. In adults, meningoencephalocele can be a consequence of injury, iatrogenesis, or some disease of unknown etiology. In this case, we can speak of spontaneous meningoencephalocele. The cause of this pathology is currently considered the effect of increased intracranial pressure on the “vulnerable” cranial areas: the Turkish saddle diaphragm, the walls of the sphenoid sinus, the ethmoid plate. Surgical treatment of intracranial hypertension is another factor likely to influence the occurrence of meningoencephalocele. Nasoliquorrhea is the most common symptom that causes patients with encephalocele health encounter. 33% of those are diagnosed with meningitis. Neuroimaging plays a key role in encephalocele diagnosis. Computed tomography of the brain can detect craniopathy. Leptomeningeal accumulation of contrast agent on T1-weighted images on magnetic resonance imaging indicates inflammation of the meninges in a patient with a clinical picture of meningitis. Encephalocele treatment is surgical. In the clinical case presented in this article, the patient with noncommunicating hydrocephalus and a history of surgical treatment of a colloid cyst was diagnosed with bacterial meningitis. Computed tomography of the head revealed a defect of the ethmoid bone and meningoencephalocele. The radiological signs of meningoencephalocele and meningitis are presented according to the data of magnetic*

resonance imaging in this patient. The patient underwent a two-stage surgical treatment with the use of endoscopic techniques and craniotomy. Four years after the operation, the radiological picture and the outcome of the disease were assessed.

K e y w o r d s : meningocele, encephalocele, meningoencephalocele, bacterial meningitis.

For citation: Ramazanov G.R., Shevchenko E.V., Stepanov V.N., Talypov A.E., Petrikov S.S. A case of secondary bacterial meningitis against the background of transethmoidal meningoencephalocele. *Russian Neurological Journal (Rossijskij Nevrologicheskiy Zhurnal)*. 2020;25(6):35–39. DOI 10.30629/2658-7947-2020-25-6-35-39
For correspondence: Shevchenko E.V., e-mail: shevchenkoev@sklif.mos.ru
Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.
Acknowledgements. The study had no sponsorship.
Information about authors
Ramazanov G.R., https://orcid.org/0000-0001-6824-4114; e-mail: ramazanovgr@sklif.mos.ru
Shevchenko E.V., https://orcid.org/0000-0001-9750-3509; e-mail: shevchenkoev@sklif.mos.ru
Stepanov V.N., https://orcid.org/0000-0003-0007-8054; e-mail: stepanovvn@sklif.mos.ru
Talypov A.E., https://orcid.org/0000-0002-6789-8164; e-mail: dr.talypov@mail.ru
Petrikov S.S., https://orcid.org/0000-0003-3292-8789; e-mail: petrikovss@sklif.mos.ru

Received 25.10.20
Accepted 07.11.20

Менингоэнцефалоцеле (энцефалоцеле) и менингоцеле — это пролабирование мозговых оболочек с веществом головного мозга или без него через дефект черепа. В зависимости от локализации дефекта выделяют энцефалоцеле затылочные, базилярные, свода черепа, фронтоэтмоидальные и менингоцеле [1]. К последним относится энцефалоцеле трансэтмоидальной локализации, составляющее 5% всех случаев данной патологии. При такой локализации грыжа располагается интраназально, что создает определенные сложности в постановке диагноза [2].

Наибольшее число случаев энцефалоцеле относится к педиатрической практике, когда речь идет о пороке развития нервной системы, связанном с нарушением смыкания нервной трубки на 3–6-й неделях гестации. Средний возраст манифестации данного порока развития у детей приходится на 15–21-й месяцы [1, 3].

Наиболее частые причины формирования менингоцеле и энцефалоцеле у взрослых пациентов — это травма и ятрогения (последствия трансназальных оперативных вмешательств, таких как удаление аденомы гипофиза, краниофарингиомы и др.). Описаны и редкие случаи спонтанно возникших менингоцеле и энцефалоцеле [3–5].

Спонтанные менингоцеле и энцефалоцеле могут манифестировать развитием аносмии, назоликвореи и проявлений менингита [2, 4, 5]. Описаны также случаи бессимптомного течения заболевания, когда трансэтмоидальное менингоцеле было выявлено при риноскопии и ошибочно диагносцировано как полип полости носа [6].

Спонтанные трансэтмоидальные менингоцеле и энцефалоцеле являются редкой патологией у взрослых, которая может привести к развитию тяжелого осложнения — менингита.

Представляем случай вторичного гнойного менингита на фоне спонтанного трансэтмоидального менингоэнцефалоцеле.

Пациентка, 51 год, обратилась с жалобами на интенсивную головную боль, шаткость походки, сонливость. За 9 дней до настоящего обращения, на фоне однократного подъема температуры тела до 38,0 °С, больная начала испытывать боль в лобной области. Родственники сообщили, что пациентка стала сонлива и заторможена. Через 2 дня от начала заболевания отметила боль в ногах без определенной локализации. В дальнейшем головная боль стала менее интенсивной, но пациентка оставалась сонливой и заторможенной.

Больная наблюдалась у оториноларинголога по поводу неуточненного новообразования в правой носовой полости. В течение трех месяцев до обращения отмечала бесцветные выделения из правого носового хода. С 2000 г. наблюдалась у невролога по поводу постоянной головной боли, а в 2005 г. была выявлена коллоидная киста третьего желудочка с окклюзионной гидроцефалией, выполнено удаление данного новообразования доступом через правую лобную премоторную область. Эпидемиологический анамнез не отягощен.

При осмотре обращали на себя внимание гиперемия и влажность кожных покровов. Температура тела была 36,1 °С. В неврологическом статусе выявлен менингеальный синдром в виде ригидности задних мышц шеи, симптома Кернига с обеих сторон. Находясь в ясном сознании, пациентка отвечала на вопросы тихими короткими фразами после пауз, выполняла инструкции замедленно, лицо было амимично. Нарушений функций черепных нервов, двигательных, чувствительных и координаторных расстройств выявлено не было.

По данным мультиспиральной компьютерной томографии (МСКТ) головного мозга выявлены рентгенологические признаки внутренней гидроцефалии (второй вентрикуло-краниальный коэффициент 23%), в ячейках решетчатой кости и носовой полости справа имелось дополнительное образование,

изначально расцененное как киста на фоне утолщения слизистой оболочки правой верхнечелюстной пазухи.

С целью исключения субарахноидального кровоизлияния и в рамках дифференциального диагноза с менингоэнцефалитом проведена люмбальная пункция. Анализ цереброспинальной жидкости (ЦСЖ) выявил снижение уровня глюкозы до 0,6 ммоль/л, повышение уровня белка до 3,19 г/л и лактата до 7 моль/л, а также нейтрофильный цитоз — 65 клеток в 1 мкл. В клиническом анализе крови имелся нейтрофильный лейкоцитоз — 22,2 × 10^9/л без сдвига лейкоцитарной формулы влево.

Диагностирован вторичный гнойный менингит. Начата эмпирическая антибактериальная терапия. В течение первых суток от начала госпитализации максимальная температура тела поднималась до 37,4 °С.

Учитывая данные анамнеза с указанием на прозрачные выделения из носа в течение трех месяцев, а также КТ-признаки новообразования носовой полости, больной отоларингологом была выполнена риноскопии, показавшая, что данное новообразование исходит из среднего носового хода, оно имело серый цвет, не пульсировало.

Изображения МСКТ головного мозга с толщиной среза 0,5 мм были реконструированы в сагиттальной и фронтальной плоскостях. Выявлен дефект горизонтальной пластинки решетчатой кости с пролабированием в него вещества головного мозга (рис. 1).

Был сформулирован клинический диагноз: трансэтмоидальное менингоэнцефалоцеле, осложненное вторичным гнойным менингитом.

Повторный анализ ЦСЖ на 3-и сутки госпитализации — жидкость ксантохромная до и после центрифугирования, белок 3,2 г/л, нейтрофильный цитоз 683 в 1 мкл. В клиническом анализе крови сохранялся лейкоцитоз 16,1 × 10^9/л, появился палочкоядерный сдвиг до 6%. За время наблюдения температура тела поднималась до 38,0 °С. Неврологический статус оставался прежним. Произведена смена антибактериальной терапии.

На 3-и сутки госпитализации выполнена магнитно-резонансная томография (МРТ) головного мозга с контрастным усилением. Использование режимов сканирования с высоким пространственным разрешением (толщина среза 1 мм, размер вокселя 1 × 1 × 1 мм) позволило уточнить, что образование в полости носа является участком базальных отделов лобной доли с оболочками, пролабирующими через костный дефект решетчатой пластинки. На Т1-взвешенных изображениях, полученных после контрастного усиления, выявлено повышение сигнала от оболочек головного мозга в области вышеописанных изменений, что является признаком воспалительных изменений (рис. 2).

На 5-е сутки госпитализации отмечена нормотермия. Пациентка стала активной, отвечала на вопросы без задержки. В лабораторных показателях периферической крови — снижение лейкоцитоза до 9,78 × 10^9/л и нормализация лейкоцитарной форму-

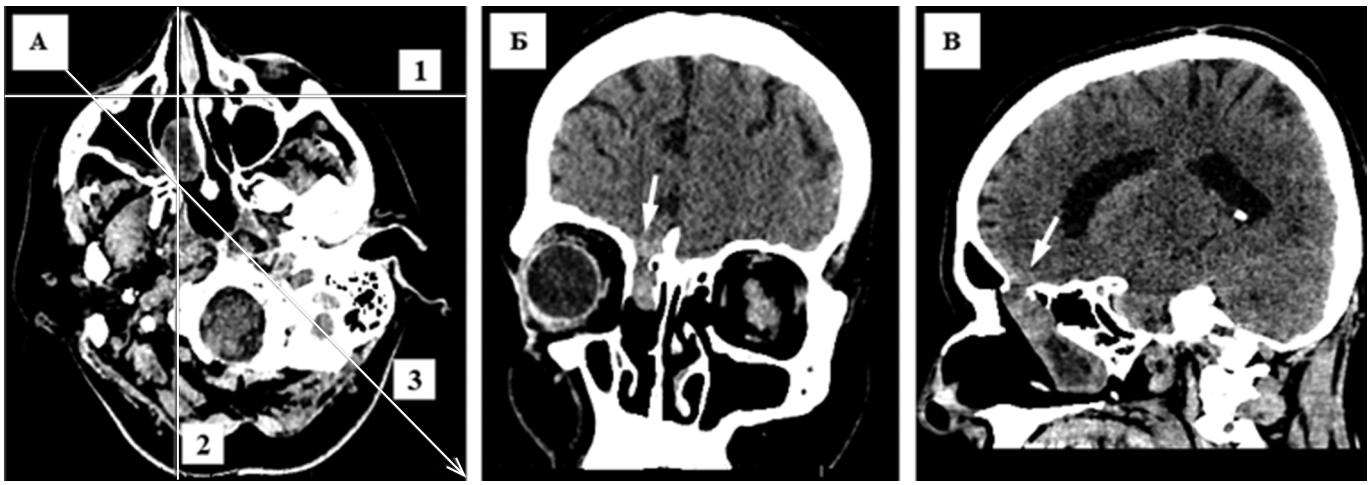

Рис. 1. Компьютерные томограммы головного мозга, реконструированные в трех взаимно перпендикулярных плоскостях (*А* — аксиальной, *Б* — корональной и *В* — сагиттальной), проходящих через полость носа (референсные линии на изображении *А* соответствуют проекциям реконструкций: *1* — корональной плоскости, *2* — сагиттальной плоскости, *3* — направлению длинной оси объекта исследования); предустановки ширины окна просмотра, оптимальные для визуализации головного мозга. На томограммах в аксиальной и сагиттальной плоскостях выявлен дефект решетчатой пластинки решетчатой кости (обозначен стрелками). На уровне дефекта визуализировано дополнительное образование, распространяющееся в правые отделы носовой полости. Денситометрический показатель образования в проксимальных отделах близок к веществу головного мозга (36–44 ед. Х), в дистальных отделах (на уровне среднего носового хода) — к жидкости (15 ед. Х)

Fig. 1. Computed tomograms of the brain reconstructed in three mutually perpendicular planes (*А* — axial, *Б* — coronal, and *В* — sagittal) passing through the nasal cavity (reference lines in image *А* correspond to the projections of the reconstructions: *1* — coronal plane, *2* — sagittal plane, *3* — the direction of the long axis of the object under the study); presetting the width of the viewport are optimal for visualizing the brain. A defect of sieve plate (indicated by arrows) was revealed on the tomograms in the axial and sagittal planes. An additional formation spreading to the right parts of the nasal cavity was visualized at the level of the defect. Densitometric indicator of the formation in the proximal sections is close to the substance of the brain (36–44 units X), in the distal sections (at the level of the middle nasal passage) — to liquid (15 units X)

лы. Биохимические и цитологические показатели ЦСЖ с невыраженной положительной динамикой в виде снижения цитоза до 464 в 1 мкл, достижения референсных значений уровня белка, глюкозы и лактата. На 6-е сутки госпитализации получен результат микробиологического исследования ЦСЖ: рост *H. influenzae*, чувствительной к назначенному антибактериальному препарату. На 12-е сутки — регресс цефалгии.

На 15-е сутки госпитализации пациентке переведено удаление менингоэнцефалоцеле, включавшее два этапа. Первым этапом выполнены краниотомия, пересечение грыжевого выпячивания у основания и пластика твердой мозговой оболочки лоскутом из подкожной жировой клетчатки. На втором этапе проведено эндоназальное эндоскопическое удаление менингоэнцефалоцеле пластинки решетчатой кости.

В послеоперационном периоде пациентке назначена профилактическая антибактериальная и симптоматическая терапия. Ликвореи не отмечали. От выполнения люмбальной пункции пациентка отказалась. Гистологическое исследовании операционного материала подтвердило диагноз менингоэнцефалоцеле.

Рис. 2. Магнитно-резонансная томография головного мозга в сагиттальной плоскости, Т1-взвешенные изображения с подавлением сигнала от жировой ткани в режиме трехмерного спинового эха (размер вокселя 1 × 1 × 1 мм). Визуализировано пролабирование базальных отделов правой лобной доли и мозговых оболочек в полость носа (отмечено стрелками). После контрастного усиления выявлено локальное повышение сигнала по лептоменингеальному типу

Fig. 2. Magnetic resonance imaging of the brain in the sagittal plane, T1-weighted images with suppression of the signal from adipose tissue in the mode of three-dimensional spin echo (voxel size is 1 × 1 × 1 mm). Prolapse of the basal section of the right frontal lobe and meninges into the nasal cavity was visualized (indicated by arrows). A local increase of the signal of leptomeningeal type was detected after contrast enhancement

Пациентка была выписана на 13-е сутки после оперативного вмешательства в удовлетворительном состоянии.

В течение четырех лет после выполнения оперативного вмешательства пациентка не отмечала назоликвореи и не переносила менингита, а при МРТ не выявлено признаков рецидива энцефалоцеле.

Обсуждение

К «спонтанным» относят те энцефалоцеле, у которых нет однозначного этиологического фактора, такого как травматическое или ятрогенное повреждение костей черепа. Причиной возникновения спонтанного энцефалоцеле в настоящее время считают влияние повышенного внутричерепного давления на «уязвимые» участки черепа: диафрагму турецкого седла, стенки клиновидной пазухи, решетчатую пластинку. Такое воздействие приводит к истончению костных структур и образованию дефекта [7, 8]. Другим фактором, вероятно, влияющим на возникновение энцефалоцеле, является хирургическое лечение внутричерепной гипертензии [9, 10]. В статье, посвященной случаю спонтанного энцефалоцеле, манифестировавшего после хирургического лечения окклюзионной гидроцефалии, G. Sharifi и соавт. предположили, что увеличение тока ЦСЖ в области решетчатой пластинки после регресса гидроцефалии приводит к формированию костного дефекта [9]. У нашей пациентки были два фактора риска энцефалоцеле: внутричерепная гипертензия в анамнезе и оперативное лечение, направленное на ее разрешение.

Назоликворея является наиболее частой причиной обращения за медицинской помощью у пациентов с энцефалоцеле. В исследовании G. Ziade и соавт. из 10 пациентов со спонтанным трансэтмоидальным менингоцеле и энцефалоцеле у 100% больных выявили ликворею [4]. Менингоэнцефалоцеле может вызывать воспаление мозговых оболочек. У 33% больных менингит был поводом к диагностическому поиску, позволившему выявить энцефалоцеле [4, 9].

Нейровизуализация играет ключевую роль в диагностике энцефалоцеле. Компьютерная томография головного мозга позволяет выявить дефект кости черепа. При трансэтмоидальном энцефалоцеле такой дефект чаще расположен в продырявленной, реже в орбитальных пластинках решетчатой кости или в месте их соединения. Средний размер дефекта составляет 2,77 ± 0,77 мм [11]. Визуализировать ткань головного мозга и оболочек позволяет МРТ [8]. Лептоменингеальное накопление контрастного агента на Т1-взвешенных изображениях указывает на воспаление мозговых оболочек у пациента с клинической картиной менингита [12].

Лечение энцефалоцеле — хирургическое. Доступ к дефекту черепа может быть осуществлен с помощью краниотомии и эндоскопически эндоназально, а также при сочетании этих методов [4, 9, 13].

Заключение

Причиной вторичного бактериального менингита может быть спонтанное трансэтомидальное менин-

гоэнцефалоцеле. Клинические признаки внутричерепной гипертензии или анамнестические указания на повышение внутричерепного давления, а также его хирургическую коррекцию являются факторами, требующими исключения энцефалоцеле у пациента с назоликвореей. Компьютерная томография головного мозга с мультипланарной реконструкцией позволяет выявить дефект кости черепа и заподозрить энцефалоцеле, а МРТ головного мозга делает возможным визуализировать ткань головного мозга, ЦСЖ и оболочки, дислоцированные через решетчатую пластинку. Лечение данной патологии хирургическое.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Конфликт интересов. Авторы заявили об отсутствии конфликта интересов.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Suwanwela C., Suwanwela N. A morphological classification of sincipital encephalomeningoceles. *J Neurosurg.* 1972;36:201–211. https://doi.org/10.3171/jns.1972.36.2.0201 PMID: 5008734
2. Castaño-Duque C.H., Monfort L., Muntané A., de Miquel M.A., Pons-Irazazabal L.C., López-Moreno J.L. Trans-ethmoid meningocele diagnosed in adults. Description of one case. *Rev. Neurol.* 1997;25(138):230–233. PMID: 9147743.
3. Junaid M., Sobani Z.A., Shamim A.A., Kazi M., Khan M.J. Nasal Encephaloceles presenting at later ages: Experience of Otorhinolaryngology Department at a tertiary care center in Karachi, Pakistan. *J. Pak. Med. Assoc.* 2012;62:74–76. PMID: 22352112
4. Ziade G., Hamdan A.L., Homsi M.T., Kazan I., Hadi U. Spontaneous Transethmoidal Meningoceles in Adults: Case Series with Emphasis on Surgical Management. *Scientific World Journal.* 2016;2016:3238287. https://doi.org/10.1155/2016/3238297. PMID: 26989762
5. Kubo A., Sakata K., Maegawa J., Yamamoto I. Transethmoidal Meningoencephalocele in an Elderly Woman. Case Report. *Neurol. Med. Chir. (Tokyo).* 2005;45(6):322–326. https://doi.org/10.2176/nmc.45.322. PMID: 15973068
6. Kosztyła-Hojna B., Popko M. Intranasal Meningocele Presenting as a Nasal Polyp — Case Report. *Pol. Merkur. Lekarski.* 2008;24(139):27–9. PMID: 18634248
7. Bullard D.E., Crockard H.A., McDonald W.I. Spontaneous cerebrospinal fluid rhinorrhea Associated With Dysplastic Optic Discs and a Basal Encephalocele: Case Report. *J. Neurosurg.* 1981;54(6):807–810. https://doi.org/10.3171/jns.1981.54.6.0807 PMID: 7241190
8. Schlosser R.J., Bolger E.W. Management of Multiple Spontaneous Nasal Meningoencephaloceles. *Laryngoscope.* 2002;112(6):980–985. https://doi.org/10.1097/00005537-200206000-00008. PMID: 12160295
9. Sharifi G., Alavı E., Jale M. Transethmoidal Encephalocele After Reduction of High Intracranial Pressure in Aqueductal Stenosis. *Turk. Neurosurg.* 2014;24(1):75–77. https://doi.org/10.5137/1019-5149.JTN.6783-12.1. PMID: 24535796
10. Schroeder H.W., Niendorf W.R., Gaab M.R. Complications of Endoscopic Third Ventriculostomy. *J. Neurosurg.* 2002;96(6):1032–1040. https://doi.org/10.3171/jns.2002.96.6.1032. PMID: 12066903
11. Schuknecht B., Simmer D., Briner H.R., Holzmann D. Nontraumatic Skull Base Defects With Spontaneous CSF Rhinorrhea and Arachnoid Herniation: Imaging Findings and Correlation With Endoscopic Sinus Surgery in 27 Patients. *Am. J. Neuroradiol.* 2008;29(3):542–549. https://doi.org/10.3174/ajnr.A0840. PMID: 18079185
12. Splendiani A., Puglielli E., De Amicis R., Necozione S., Masciocchi C., Gallucci M. Contrast-enhanced FLAIR in the early diagnosis of infectious meningitis. *Neuroradiology.* 2005;47(8):591–598. https://doi.org/10.1007/s00234-005-1383-7. PMID: 16034600
13. Крылов В.В., Абдилатипов А.А., Андреев Д.Н. Эндоскопическая нейрохирургия. М.: АБВ-пресс, 2020 [Krylov V.V., Abdilatipov A.A., Andreev D.N. Endoskopicheskaya nejrohirurgiya. M.: ABV-press, 2020. (In Russian)].

Поступила 25.10.20
Принята к печати 07.11.20