

## DEREGLĂRILE VASCULARE ISCHEMICE MEDULARE ÎN ARAHNOIDITA OSIFICANTĂ

Diomid Gherman, Ecaterina Chiriac

Catedra Neurologie, USMF „Nicolae Testemițanu”

### Summary

#### *Arachnoiditis ossificans with ischemic spinal cord injury*

Spinal arachnoiditis ossificans (AO) is a rare entity, characterized by bony metaplasia of the arachnoid membrane. Many factors have been implicated as favoring this condition, and they are generally related to traumatic, iatrogenic and infective causes. This paper reports 2 cases of AO morphologically confirmed, with ischemic spinal cord injury. The arachnoid calcifications have deteriorated the sulci artery (anterior spinal artery branch) at the thoracic level in the first case, causing spastic paraparesis with sensibility and sphincter disturbances, and the anterior spinal artery at the cervical region in the second case, causing amyotrophic diparesis and pyramidal insufficiency in the lower limbs. It were presented for the first time two cases of AO associated with vertebral osteoporosis, that progressively deteriorated the medulary arteries, causing ischemic monosegmentary stroke at the thoracic level of the spinal cord in the first case and cervical myelopathy in the second one.

### Rezumat

Arahnoidita osificantă (AO) este un fenomen rar, ce se caracterizează prin metaplazia osoasă a arahnoidei. Mai mulți factori etiologici determină apariția acestei patologii, fiind clasificați în traumatici, iatrogenici și infecțioși. În această lucrare au fost prezentate două cazuri de AO spinală confirmate morfologic, care au provocat mielopatie ischemică. Pietrificatele au deteriorat în primul caz artera sulci (ramură a arterei spinale anteroioare) la nivelul toracal, declanșând o parapareză spastică, cu tulburări senzitive sublezionale și sfincteriene, iar în al doilea caz – artera spinală anteroiară la nivelul cervical, declanșând o dipareză atrofică și insuficiență piramidală la nivelul membrelor inferioare. În premieră au fost prezentate două cazuri de AO spinală asociată cu osteoporoză vertebrală, care a deteriorat progresiv arterele medulare, cauzând ictusul ischemic medular monosegmentar toracic în primul caz și mielopatie cervicală în cel de-al doilea caz.

### Actualitatea

Arahnoidita osificantă (AO) este un fenomen unic și neobișnuit, ce se caracterizează prin metaplazia osoasă a membranei arahnoide [5]. Această patologie apare ca urmare a numeroaselor procese predispozante, precum intervențiile chirurgicale spinale, traumele, infecțiile, mielografia și hemoragia subarahnoidiană [4,5,10]. Mecanismul fiziopatologic al AO nu a fost pe deplin studiat, totuși se presupune a fi consecința inflamației cronice a arahnoidei [5, 11].

În literatură au fost documentate mai mult de 50 de cazuri de AO pînă în anul 2013. Puusepp a descris și tratat primele 4 cazuri de osificări arahnoidiene. În anul 1971 Kaufman și Dunsmore au propus termenul de arahnoidită osificantă [8,12]. În acest review au fost analizate cazurile de AO raportate în literatură pînă în anul 2013, cu scopul de a evidenția particularitățile clinice la acești pacienți și a evidenția rolul tratamentului chirurgical al acestora. Majoritatea autorilor au prezentat cîte 1-2 cazuri clinice, care confirmă faptul că această patologie se întîlnește rar.

Până la era imagisticii nucleare (CT, RMN), toate cazurile de AO au fost confirmate clinic-morfologic. Conform rezultatelor CT și IRM, în baza poziției și aspectului focarelor de osificare în relație cu sacul dural, Domenicucci et al. clasifică AO în:

- tipul I – „banana-like”/înfățișarea unei banane și înglobează doar o porțiune a sacului dural, localizată exclusiv în regiunea toracică;
- tipul II – „ring-shaped”/aspect inelar și înglobează întreaga circumferință a sacului dural, localizată în regiunea toracică și lombară;
- tipul III – „honeycomb”/fagure de miere, osificarea afectează întregul conținut al sacului dural, localizată în regiunea lombară [2].

### **Material și metode**

Acest studiu este bazat pe analiza celor mai relevante cazuri de arahnoidită osificantă raportate în literatură din anul 1957 până în prezent și prezentarea a 2 cazuri proprii.

Au fost studiate 18 articole din literatura de specialitate, ce datează din anul 1957 până în prezent, în care au fost caracterizate 28 cazuri de arahnoidită osificantă. Pacienții studiați aveau vîrste cuprinse între 20 și 71 ani. Șase dintre pacienți aveau AO localizată în regiunea toracică (AO tip I), iar 22 pacienți – în regiunea lombo-sacrală (AO tip II și III).

AO a fost precedată cu mulți ani anterior diagnosticului de diverse evenimente, precum: laminectomia (3 pacienți), mielografia (8 pacienți), malformațiile arterio-venoase spinale (2 pacienți), traume vertebro-medulare (5 pacienți), meningite (3 pacienți), rahianestezie (1 pacient), dereglați hormonale (hiperparatiroidism – 1 pacient). La 15 dintre pacienți descriși s-au combinat mai mulți factori etiologici.

Diagnosticul de AO a fost precedat de o perioadă îndelungată de acuze neurologice cronice, precum: toraco-lombalgii (18 pacienți), semne radiculare (10 pacienți), dereglați de sensibilitate (10 pacienți), parapareză/paraplegie (20 pacienți), tulburări sfincteriene (2 pacienți). Localizarea toracică a fost asociată cu un deficit neurologic sever, iar cea la cea lombară deficitul neurologic a fost mai puțin sever [1,2,6,8,13]. Cazuri de osteoporoză vertebrală și dereglați medulare ischemice n-au fost prezentate.

Doisprezece pacienți au fost tratați conservator, ca rezultat la 2 pacienți starea s-a ameliorat. Ceilalți pacienți au fost tratați chirurgical (înlăturarea focarelor de osificare), 5 pacienți prezentând o ameliorare considerabilă după tratament.

### **Fiziopatologia AO**

Mecanismul fiziopatologic de apariție a AO nu este complet studiat. Au fost incriminați mai mulți factori care ar determina apariția acestei patologii, precum: iritarea chimică ca urmare a anesteziei spinale, infecțiile și tumorile spinale, traumatismele vertebro-medulare, intervențiile chirurgicale spinale, hemoragia subarahnoidiană, mielografia și leziunile vasculare. De asemenea, a fost raportat un caz de AO spinală familială [9], iar uneori cauza nu poate fi identificată. Deci, se presupune că factorii inflamatori ori non-inflamatori, pot induce proliferarea osteoblastică a celulelor meningoendoteliale și/sau arahnoidale. Totodată, Wagner et al. [2,15] a prezentat un caz de AO la un pacient cu hipoparatiroidism. Domenicucci et al. a prezentat un caz de AO la un pacient cu hiperparatiroidism. Deci, sumarizând, conform concepției lui Slager [14], în etiopatogenia AO sănătății implicați mulți factori locali și generali, aceștia din urmă fiind de natură hormonală sau metabolică.

### **Histopatologie**

Examinarea microscopică a focarelor de osificare arahnoidiană a demonstrat că țesutul osos este identic celui normal. La unii pacienți a fost descris țesut osos matur, cu structură trabeculară ori lamellară. Unii autori descriu prezența celulelor polimorfonucleare, leucocitelor și infiltratelor inflamatorii cronice [2].

## Diagnosticul

În prezent, principalele metode de diagnostic a AO sunt CT și RMN. CT furnizează o vizualizare optimală a AO, permisiind diferențierea celor 3 tipuri de AO descrise anterior. RMN evidențiază structura măduvei spinării și patologiile care însoțesc AO, însă este mai puțin utilă pentru identificarea particularităților și tipului de osificare. Deci, CT și RMN sunt examenele paraclinice complementare inerente stabilirii diagnosticului de AO și patologiilor spinale care o însoțesc [2,8].

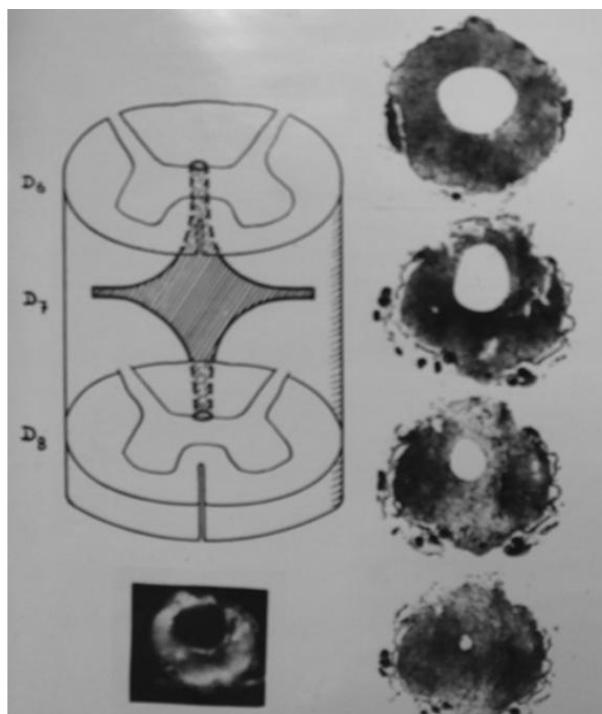
## Tratamentul

Tratamentul AO este controversat. Necesitatea intervenției chirurgicale este determinată de severitatea simptomelor. Conform datelor din literatură, rezultatelor intervențiilor chirurgicale de înlăturare a maselor de osificare au fost variate, în unele cazuri observându-se regresia simptomelor, în altele agravarea secundară, ca urmare a apariției focarelor noi de osificare. Intervenția chirurgicală spinală, ca factor etiologic al inflamației arahnoidiene, poate cauza recurența timpurie a AO. Acest fapt argumentează beneficiile tratamentului conservator care ar putea stopa dezvoltarea focarelor de AO, prevenind astfel complicațiile precoce și tardive ale intervenției chirurgicale. Totuși, o metodă eficientă de tratament este laminectomia [3,10], care ameliorează vascularizarea măduvei și fluxul LCR. Au fost obținute rezultate satisfăcătoare ale tratamentului conservator la pacienții cu AO tip III (lombar), care se prezintă prin deficit neurologic ușor sau moderat. Deci, concluzionăm că tratamentul chirurgical ar trebui să fie efectuat în cazurile cu manifestări neurologice severe (de obicei în AO tip I). Astfel, ar putea fi prevenite sechelele neurologice ca urmare a intervențiilor chirurgicale [2].

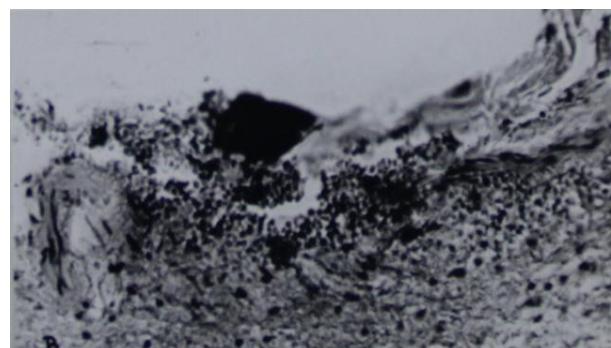
Prezentăm 2 cazuri de AO, urmată de afectarea ischemică medulară.

### Cazul clinic 1

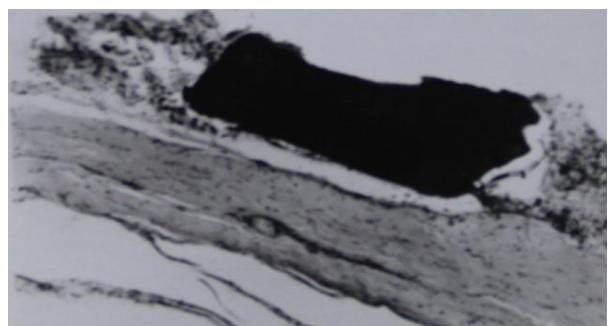
Pacienta B., vîrstă de 72 ani, a fost internată în clinica de neurologie cu acuze la slăbiciuni în picioare și încordare a mușchilor la mers, deregări de sensibilitate și mișcări. Maladia s-a declanșat după o traumă neînsemnată a coloanei vertebrale (o cădere neînsemnată, fără fracturi), după care treptat, lent au apărut slăbiciuni în membrele inferioare.



**Figura 1.** Pacienta B., cavitate medulară în formă de con la nivelul Th 7, declanșată de deteriorarea de către pietrificate a arterei centrale sulci, ramură a arterei spinale anterioare.



**Figura 2.** Pacienta B., deteriorarea arterei sulci de către pietrificate arahnoidiene.



**Figura 3.** Pacienta B., pietrificat epidural la nivelul Th 7.

Organele interne cu schimbări caracteristice vîrstei înaintate. Examenul nervilor cranieni nu a evidențiat modificări patologice. Deregări de sensibilitate de tip conductiv de la nivelul Th 7. Reflexele rotuliene și achiliene exagerate, semnul Babinski bilateral. Deregări sfincteriene de tip central. Radiografia coloanei vertebrale a confirmat osteoporoză vertebrelor toracale, care s-a prezentat sub formă de linii biconcave. A decedat peste 4 luni de la debutul bolii, din cauza unei pneumonii care s-a complicat cu insuficiență respiratorie. Investigațiile morfopatologice au depistat o cavitate de formă ovală la nivelul segmentului 7 toracal, care conținea țesut proteinaceu medular de consistență păstoasă, ocupa partea centrală a măduvei, treptat îngustându-se în sus și în jos în formă de con în teritoriul unui segment (Fig. 1). Mai sus și mai jos de această cavitate schimbările corespundeau mielopatiei discirculatorii. Cauza formării acestei cavități a fost afectarea arterei sulci (ramură a arterei spinalis anterior) de către pietrificatele arahnoidiene (Fig. 2), care era lezată de un proces fibros cu pietrificate. Pietrificate au fost depistate atât în arahnoidă, cât și în dura mater și epidural dispers (Fig. 3).

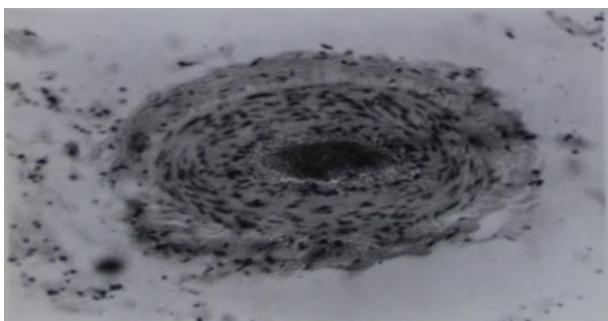
### **Rezumat**

La pacienta B., 72 de ani, pe fondul de osteoporoză vertebrală s-a declanșat o AO, preponderent la nivelul toracal. Pietrificatele au comprimat și deteriorat artera sulci (ramură a arterei spinale anterioare) și ca rezultat s-a format un ictus ischemic medular monosegmentar în formă de con. Ultimul a declanșat o paraplegie spastică, deregări de sensibilitate de tip conductiv sublezionale și deregări sfincteriene.

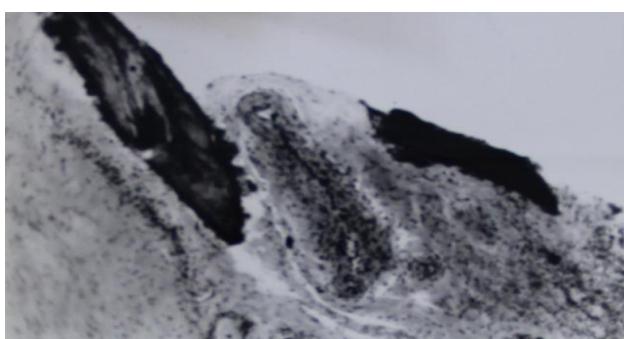
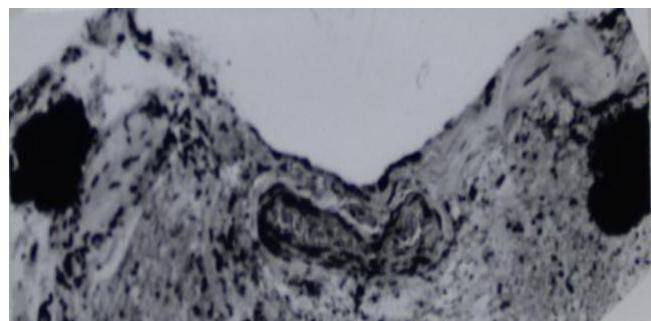
### **Cazul clinic nr. 2**

Pacienta Ș., vîrstă de 40 ani, a fost internată repetat cu acuze la slăbiciune și limitarea mișcărilor în membrele superioare și dispnee, care au apărut un an în urmă și treptat au progresat pînă la limitarea mișcărilor, atrofia musculară a regiunii brahiale și mîinii, însotite de fasciculații. S-a tratat în spitalul de infecții cu suspectie la bruceloză, însă diagnosticul nu s-a confirmat.

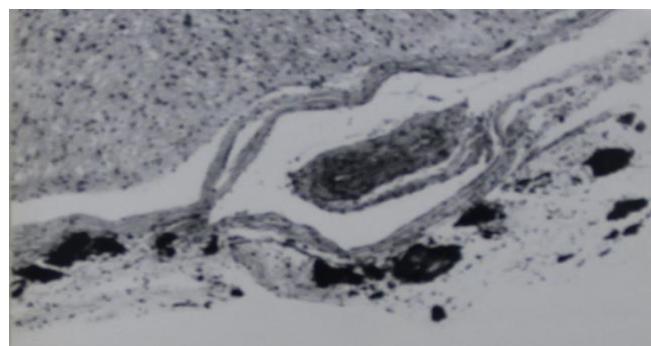
Neurologic: nervii cranieni în limitele normei. Sensibilitatea păstrată. Forță musculară 2 puncte în mușchii regiunii brahiale și mîinii, reflexele tricepital, bicipital și carpo-radial absente bilateral, reflexele rotuliene și achiliene exagerate, simptomele patologice Babinski și Rossolimo pozitive bilaterale. Analiza lichidului cefalo-rahidian în limitele normei. Radiologic s-a apreciat osteoporoză vertebrală cu îngustarea spațiului intervertebral C4-C5 cu artroză și osteofiti uncovertebraли. Pacienta a decedat din cauza unei pneumonii și insuficienței respiratorii. La autopsie corpii vertebralei sunt fragili și la o apăsare ușoară degetele pătrund în corpul vertebrei. Histologic se apreciază diferite stadii de apoptoză a neuronilor, rarefieră țesutul medular, arterele cu hiperplazia și proliferăția intimei și adventiției, și lumenul stenozat (Fig. 4). Artera spinală anterioară a fost comprimată de pietrificatele arahnoidiene (Fig. 5). Pietrificate s-au mai depistat la nivelul leptomeningelui și epidural (Fig. 6).



**Figura 4.** Pacienta Ș., arteră cu hiperplazia peretelui și lumen stenozaț.



**Figura 6.** Pacienta Ș., pietrifică epidurală cu deformarea arterei la nivelul C4-C5.



**Figura 5.** Pacienta Ș., măduva spinării (C4-C5). Artera spinală anterioară comprimată de pietrifică.

## **Rezumat**

La pacienta S., vîrstă de 40 ani, cu osteoporoză vertebrală, s-a dezvoltat treptat timp de 2 ani un sindrom de amioatrofie în membrele superioare și toracic superior. A decedat din cauza unei pneumonii, ca rezultat al insuficienței respiratorii. Clinico-morfologic, s-a apreciat osteoporoză pronunțată vertebrală și schimbări caracteristice de mielopatie atrofică, cauza principală a decesului fiind mielopatia progresivă, forma atrofică, care s-a manifestat prin atrofia musculaturii membrelor superioare și regiunii cervicale, și insuficiența respiratorie. Mielopatia a fost cauzată de către pietrificatele arahnoidiene, care au comprimat artera spinală anteroară la nivelul cervical.

## **Discuții**

AO este un fenomen unic și neobișnuit, ce se caracterizează prin metaplazia osoasă a membranei arahnoide, ce apare ca urmare a numeroaselor procese predispozante, precum intervențiile chirurgicale spinale, traumele, infecțiile, mielografia și hemoragia subarahnoidiană.

Formarea pietrificatelor în țesuturile moi ale măduvei spinării în osteoporoză este cauzată de dereglarea metabolismului calciului, care nu este captat de către sistemul osos, acest proces fiind mediat de către hormonii sexuali. Patogenia formării pietrificatelor arahnoidiene în contextul altor factori etiologici nu este complet elucidată. Un interes deosebit prezintă dereglarea metabolismului mineral, cauzată de insuficiența hormonilor sexuali, care declanșează osteoporoza [16,17].

## **Concluzii**

Au fost prezentate două cazuri de AO spinală confirmate morfologic, care au provocat mielopatie ischemică. Pietrificatele au deteriorat în primul caz artera sulci, ramură a arterei spinale anterioare, la nivelul toracal, formând o cavitate ischemică monosegmentară și declanșând o parapareză spastică, cu dereglați de sensibilitate sublezionale și tulburări sfincteriene. În al doilea caz pietrificatele au comprimat artera spinală anteroară la nivelul cervical, declanșând o dipareză atrofică și insuficiență piramidală la membrele inferioare. Pietrificatele au fost depistate în arahnoidă, leptomeninge și epidural. Pacientele au suferit de osteoporoză vertebrală, cauzată de insuficiența hormonilor sexuali feminini, ceea ce determină dereglarea metabolismului de calciu, care nu este captat de către țesutul osos, determinând formarea pietrificarea arahnoidiene.

În AO pietrificatele provoacă preponderent deterioarea arterelor spinale, declanșând ischemie medulară.

## **Bibliografia**

1. Capron I, Gille M, Guiot S, Lindemans I, Duprez T, Goffin J. *Thoracic myelopathy revealing a chronic ossificans arachnoiditis of the thoracolumbar spinal cord [in French]*. Rev Neurol (Paris) 156:395–398, 2000.
2. Domenicucci M, Ramieri A, Passacantilli E. *Spinal arachnoiditis ossificans: report of three cases*. Neurosurgery, 2004. Vol.55: E1011-E1017.
3. Faure A, Khalfallah M, Perrouin-Verbe B. Arachnoiditis ossificans of the cauda equina. J Neurosurg (Spine 2),2002; 97:239-243
4. Frizzell B, Kaplan P, Dussault R, Sevich R. *Arachnoiditis ossificans: MR imaging features in five patients*. AJR Am J Roentgenol 177:461–464, 2001.
5. Ibrahim GM, Kamali-Nejad T, Fehlings MG. *Arachnoiditis ossificans associated with syringomyelia: An unusual cause of myelopathy*. Evidence-Based Spine-Care Journal 2010. Volume 1/Issue 2: 46-51
6. Kahler RJ, Knuckey NW, Davis S (2000) Arachnoiditis ossificans and syringomyelia: a unique case report. *J Clin Neurosci*;7(1):66–68.

7. Kumaran SP, Gupta K. *Post-traumatic arachnoiditis ossificans*. J Emerg Trauma Shock, 2013; 5(3): 250-252.
8. Lucchesi AC, White WL, Heiserman JE. *Review of Arachnoiditis Ossificans with a Case Report*. Barrow Quarterly 1998. Vol. 14, nr. 4.
9. Lynch C, Patello Moraes G. Spinal arachnoiditis ossificans: case report. Neurosurgery 1983. Vol. 12, nr.3: 321-324.
10. Mello LR, Bernardes CI, Feltrin Y, Rodacki MA. *Thoracic spine arachnoid ossification with and without cord cavitation: Report of three cases*. J Neurosurg 94[Suppl 1]:115–120, 2001.
11. Papavlasopoulos F, Stranjalis G, Kouyialis AT, et al. Arachnoiditis ossificans with progressive syringomyelia and spinal arachnoid cyst. *J Clin Neurosci* 2007; 14(6):572–576.
12. Puusepp L. *Surgical intervention in four cases of myelitis compression caused by osseous deposits in the arachnoidea of the spinal cord (arachnoiditis ossificans)*. J Nerv Ment Dis 1931. 73:1-19.
13. Shiraishi T, Crock HV, Reynolds A. *Spinal arachnoiditis ossificans. Observations on its investigation and treatment*. Eur Spine J, 1995. 4:60–63
14. Slager U: Arachnoiditis ossificans: Report of a case and review of the subject. Arch Pathol, 70:322–327, 1960.
15. Wagner JA, Slager UT, Tucker L. *Hypoparathyroidism with cerebral calcification: Report of a case*. Bull Sch Med Univ Md 39:102–109, 1954.
16. Gherman D.G., Chetrali E. Spondilopatie hormonală. Chișinău, 1984
17. Gherman D.G. Complicațiile neurologice în spondilopatia osteoporotică. Chișinău, 2013.

## FENOMENUL DE PRECONDITIONARE ISCHEMICĂ LA PACIENȚI CU ACCIDENT VASCULAR ISCHEMIC ȘI HEMORAGIC

(Revista literaturii)

**Mihail Gavriliuc, Rodica Luchianciuc**

Catedra Neurologie USMF,,Nicolae Testemițanu”

### Summary

*The phenomenon of ischemic preconditioning at the patients with ischemic and hemorrhagic stroke*

Medical scientific literature referring to the ischemic preconditioning that includes concepts, classifications, pathophysiological mechanisms and biochemical changes has been studied. Electronic library consisting of items about the importance of remote ischemic preconditioning, applied in ischemic and hemorrhagic stroke has been searched. The purpose and objectives of the following research have been set out. The scientific and practical importance of remote preconditioning in ischemic and hemorrhagic stroke has been established.

### Rezumat

A fost studiată revista literaturii referitor la preconditionarea ischemică, incluzând notiuni generale, clasificari, mecanisme fiziopatologice și biochimice. A fost cercetată biblioteca electronică cu articole ce includeau informații despre importanța preconditionării ischemice la distanță aplicată în accidentele vasculare cerebrale ischemice și hemoragice. Au fost stabilite scopul și obiectivele următoarei cercetări. S-a stabilit importanța practică și științifică a preconditionării ischemice la distanță în accidentele vasculare cerebrale ischemice și hemoragice.