

Spinal Epidural Haematoma Without Significant Trauma in a Child

Urška Vračko, Jani Breznik, Mitja
Benedičič, Barbara Faganel Kotnik

Izvleček

Spinalni epiduralni hematom brez pomembne predhodne poškodbe je nujno stanje, s katerim se v pediatriji srečamo zelo redko. Diagnozo postavimo s kliničnim pregledom in slikovno preiskavo. Zdravljenje je večinoma kirurško. V prispevku predstavljamo spinalni epiduralni hematom pri enajstletnem, do tedaj zdravem dečku, ki je nenadoma začutil bolečino v predelu desne lopatice. Po kliničnem pregledu smo sum na patološko dogajanje v predelu hrbenice potrdili z magnetnoresonančnim slikanjem. Po kirurški evakuaciji hematoma je deček popolnoma okreval.

Ključne besede: spinalni epiduralni hematom, otrok, bolečina, nevrološki znaki, laminektomija.

Abstract

Spinal epidural haematoma without significant precedent trauma is an emergency medical condition, which is rarely encountered in paediatrics. The diagnosis is made by clinical examination and imaging. Treatment is generally surgical. In this paper, we present the clinical picture and treatment of spinal epidural haematoma in an eleven-year-old previously healthy boy, who complained of sudden pain in the right shoulder blade area. Clinically, we suspected spinal pathology, which was eventually proven by magnetic resonance imaging. After surgical evacuation of the haematoma, the boy made a complete recovery.

Key words: spinal epidural haematoma, child, pain, neurological signs, laminectomy.

Uvod

Spontani spinalni epiduralni hematom (angl. spontaneous spinal epidural hematoma, SSEH) je redko, a nujno stanje (1), pri katerem se v epiduralnem prostoru spinalnega kanala nakoči kri brez predhodne pomembne poškodbe (2). Ker izraz SSEH zajema tako idiopatski SEH (angl. *spinal epidural haematoma*, SEH), krvavitve zaradi motnje strjevanja krvi, krvavitve zaradi žilnih malformacij kot tudi krvavitve zaradi predhodne manjše poškodbe (3,4), nekateri strokovnjaki predlagajo poimenovanje SEH brez predhodne pomembne poškodbe (5, 6).

Dejavni tveganja za razvoj SSEH so tumorji, antikoagulantno zdravljenje, prirojene motnje strjevanja krvi, arterijska hipertenzija, arterio-venske malformacije in poškodbe (7). SSEH se najpogosteje pojavi v četrtem in petem desetletju življenja z znaki akutne bolečine v vratu ali hrbtu z zakasneli mi nevrološkimi znaki (2). Pri otrocih je diagnosticiranje oteženo, saj je klinična slika običajno neznačilna, nevrološka ocena pa manj zanesljiva (2).

Za uspešno zdravljenje sta potrebeni čimprejšnja prepoznavanje in v večini primerov tudi kirurška dekompenzacija (1). Ker gre za izjemno redko stanje, zlasti pri otrocih, je pomembno, da v diferencialnodiagnostičnem naboru vzrokov za bolečino v vratu ali hrbtenici vedno pomislimo tudi na SEH. Ob sumu na SEH je nujno hitro ukrepanje, saj s postavitevijo napačne diagnoze zamudimo pravočasno zdravljenje, kar se odrazi v rasti hematoma (7). Nezdravljeni SEH lahko vodi v paraplegijo in tetraplegijo, opisujejo pa tudi smrtnne primere (1).

Prikaz primera

Enajstletni, sicer zdrav deček je bil rojen v roku po normalno potekajoči nosečnosti. Zjutraj je med gledanjem televizije začutil nenadno bolečino v področju desne lopatice, zato mu je

mati dala paracetamol. Dve uri kasneje je opisal mravljinčenje v desnem zgornjem in spodnjem udu, čez dan pa še negotovost pri hoji, zato so ga sprejeli v regionalno bolnišnico. Dan po sprejemu je še vedno navajal bolečine, ki so bile manj izrazite in so po jemanju paracetamola izzvenele pa tudi hoja se je izboljšala in se po dvodnevni hospitalizaciji povsem normalizirala. Laboratorijske preiskave (hemogram, elektroliti, sečnina, kreatinin, transaminaze, bilirubin in encimi mišičnega razpada) so bile v mejah normalnih vrednosti, kazalniki vnetja pa nizki. Ker je specialist fizijater ocenil, da gre za spastično mišično bolečino, ob kateri se lahko pojavi tudi mravljinčenje, so dečka po dveh dneh v izboljšanem stanju odpustili v domačo oskrbo.

Zvečer istega dne ga je iz spanja zbulila bolečina v področju desne lopatice. Po protibolečinskem zdravilu je preostanek noči prespal. Zjutraj se je prebudil pomočen in spet navajal mravljinčenje. Čez dan je opažal šibkost desne strani telesa in težo hojo, zato ga je dežurni zdravnik regionalne bolnišnice po opravljenem pregledu napotil na Pediatrično kliniko Univerzitetnega kliničnega centra Ljubljana.

Ob sprejemu je bil deček neprizadet, brez povišane telesne temperature in dobro razpoložen, navajal pa je bolečine v vratu. Nevrološki status je pokazal izrazito omejeno gibljivost vratu in nakazane pozitivne meningealne značke. V desnem zgornjem in spodnjem udu smo ugotovili zmanjšano aktivno gibljivost in zmanjšanje mišične moči ob ohranjenem tonusu in trofiki. Kitni refleksi na zgornjih in spodnjih udih so bili so živahni in simetrični. Rezultat testa za latentno parezo je bil zaradi desnostranske šibkosti nezanesljiv. Test prst-nos je deček z desnico izvajal upočasnjeno in nenatančno, a brez tremorja, pri tandemski hoji ga je zanašalo, Rombergov preizkus je bil negativen. Hoja je delovala širokotirno in nezanesljivo, hoja po prstih pa je bila normalna. Ob pregledu ni navajal senzibilitetnih izpadov.

Zaradi suma na patološko dogajanje v spinalnem kanalu smo opravili magnetnoresonančno slikanje (MRI) glave in cervikotorakalnega predela hrbtenice, ki je pokazalo utesnitev spinalnega kanala na cervikotorakalnem prehodu, najverjetneje zaradi epiduralnega hematoma v področju med vretencem C5 in Th1 z najbolj iztisnjениm likvorskim prostorom na ravni C6-C7.

Natančna družinska in osebna anamneza nista pokazali prirojenih motenj strjevanja krvi ali slabosti vezivnega tkiva. Izvidi v nočnem času dostopnih presejalnih testov strjevanja krvi, tj. hemograma, protrombinskega časa, parcialnega tromboplastinskega časa, trombinskega časa in fibrinogena, so bili za starost primerni. Pomembnih poškodb, ki bi jih utрpel v dnevih pred sprejemom, njegovi starši niso navedli.

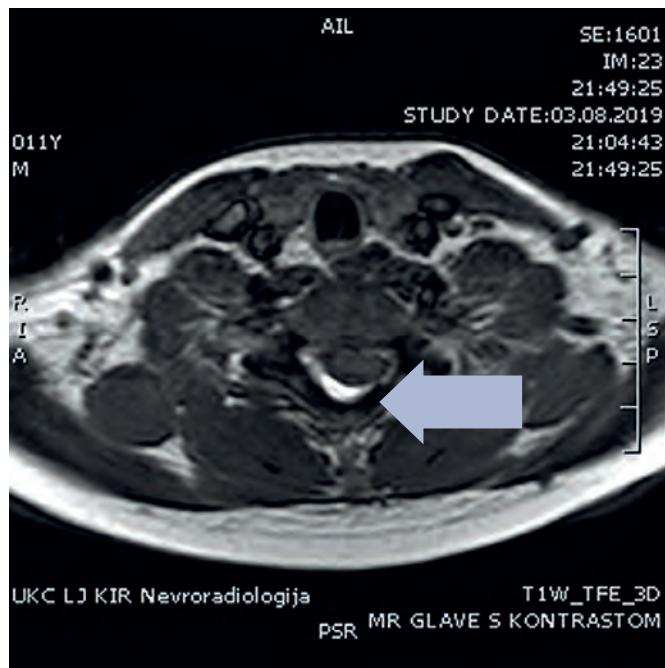
Dečka smo predstavili specialistu nevrokirurgu, ki je še isto noč opravil desnostransko dekompreziju hemilaminektomijo v področju vretenc C5-Th1 in evakuiral epiduralne formacije, ki smo jih naknadno histološko opredelili kot hematom v fazi organizacije. Pred posegom in še nekaj dni po operaciji je prejemal antiedematozno zdravljenje z deksametazonom. Po posegu deček ob rednem jemanju protibolečinskih zdravil ni navajal bolečin in parestezij, vse štiri ude pa je gibal normalno ob blago zmanjšani mišični moči desne roke. Navajal je občutek toplote v področju desnih udov.

Zaradi ne povsem pojasnjene etiologije epiduralnega hematoma smo med hospitalizacijo in tudi po odpustu opravili obširne diagnostične preiskave za izključitev motnje strjevanja krvi ali slabosti vezivnega tkiva, česar nismo dokazali. Naknadno so starši omenili, da je tri dni pred pojavom težav med igranjem nogometna padel vznak na travnato površino.

Pet dan po posegu smo dečka odpustili v domačo oskrbo. Pricel je z intenzivno rehabilitacijo na Univerzitetnem rehabilitacijskem inštitutu Soča. Po zaključenem fizioterapevtskem zdra-



SLIKA 1. SAGITALNI MRI POSNETEK PRED POSEGOM.
FIGURE 1. SAGITTAL MRI IMAGE BEFORE SURGERY.



SLIKA 2. TRANSVERZNI MRI PRED POSEGOM.
FIGURE 2. TRANSVERSE MRI BEFORE SURGERY.

vljenju smo opravili kontrolni pregled nevrološkega stanja. Pareza je izvenerila in prišlo je do popolnega kliničnega izboljšanja, zato smo predlagali postopno uvajanje v športne dejavnosti in svetovali izogibanje hujšim udarcem ter hitrim in sunkovitim gibom. Pol leta po operaciji je deček opravil kontrolno MRI hrbtenice, ki ni pokazala rezidualnih sprememb po posegu in tudi ne znakov žilnih malformacij, zato se za dodatno slikovno diagnosticiranje, tj. računalniškotomografsko angiografijo (CTA) ali digitalno subtrakcijsko angiografijo, nismo odločili.

Razpravljanje

Epiduralni hematom je kolekcija krvi med duro mater in kostjo. Topografsko epiduralne hematome delimo na znotrajlobanske in spinalne. Znotrajlobanski hematomi se običajno pojavijo po poškodbi glave in so lahko akutni, subakutni ali kronični (8). Etiološko SEH delimo na travmatske, iatrogene (kot posledica posegov v tem predelu,

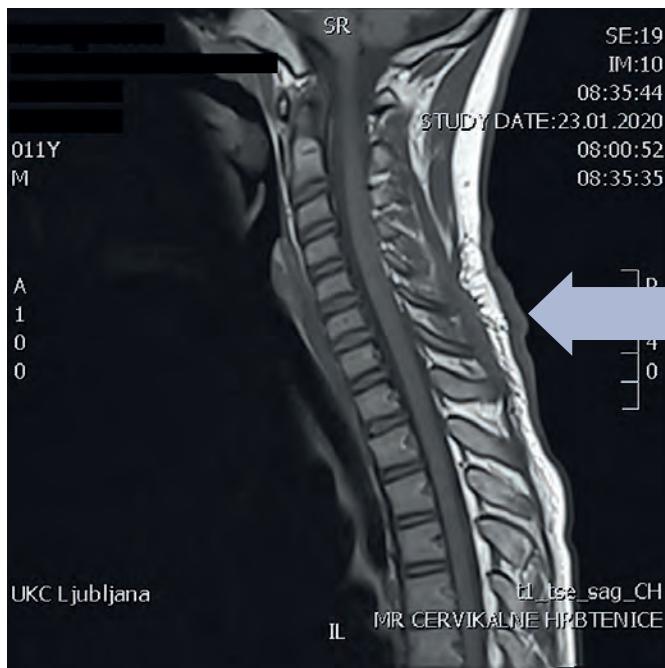
npr. zaradi lumbalne punkcije, epidurale anestezije) in spontane (9). Ker izraz spontani SEH zajema tako idioski SEH, krvavitve zaradi motnje strjevanja krvi in žilnih malformacij kot tudi krvavitve zaradi predhodne manjše poškodbe (3, 4), nekateri strokovnjaki predlagajo, da poimenovanje SSEH opustimo in tovrstno krvavitev pojmenujemo SEH brez predhodne pomembne poškodbe (5, 6).

SEH brez pomembne predhodne poškodbe predstavljajo manj kot 1 % vseh sprememb, ki jih ugotovimo v spinalnem prostoru (8, 9). Letno pojavnost v splošni populaciji ocenjujejo na en primer na milijon prebivalcev (9), pri otrocih pa naj bi bila še nižja. Pri otrocih se običajno pojavi v cervikotorakalnem predelu, krvavijo pa najpogosteje iz ven (10).

V opisanem primeru smo med pooperativnim spremeljanjem ugotovili, da je deček tri dni pred pojavom kliničnih znakov utrpel blažji udarec ob padcu na travo vznak, zato morebitnega vpliva blage poškodbe ob padcu na razvoj

hematoma ne moremo z zagotovostjo izključiti. Glede na pogostost podobnih lažjih poškodb pri otrocih in izredno malo primerov SEH lahko krvavitev v opisanem primeru uvrstimo med SEH, ki se razvijejo brez pomembne poškodbe pred pojavom znakov.

Klinična slika običajno nastopi nenašno. Značilna je akutno nastala bolečina v predelu vrata ali hrbta, ki se lahko širi navzdol v spodnje ude. Pridružijo se lahko nevrološki simptomi, od blagega mravljinčenja do popolne hemipareze, in so posledica okvare spodnjega motoričnega nevrona s hiporeflexijo in flakcidno paralizo (11). Pogosto so v ospredju tudi netipični simptomi in znaki, tj. razdražljivost, jokavost in tortikolis s povišano telesno temperaturo ali brez nje, kar lahko zmotno napelje na diagnozo meningitis (3, 10, 11–15). Pri mlajših otrocih pogosto ugotavljamo tudi zastajanje seča, pri starejših otrocih pa je najbolj značilna dobro umeščena bolečina v vratu ali ledveno (11). Nevrološki simptomi lahko nastopajo tudi z večurno do nekajdnevno zakasnitvijo (6). Pri opisanem prime-



SLIKA 3. SAGITALNI MRI POSNETEK PO POSEGU.

FIGURE 3. SAGITTAL MRI IMAGE AFTER SURGERY.

ru so se nevrološki simptomi spremnili in lažno nakazovali izboljšanje še neopredeljenega stanja.

Z MRI smo kot vzrok težav izključili primarne tumorje hrbtenjače (npr. astrocytom), primarne kostne tumorje vretenc (npr. osteosarkom, osteoblastom), metastatske tumorje (levkemija, nevroblastom, limfom), tranzverzni mielitis, epiduralni absces in spondilolistezo.

V stopenjskem diagnosticiranju lahko opravimo rentgensko slikanje za izključitev zlomov vretenc (11). Ob nejasnih primerih in sumu na okužbo osrednjega živčevja je na mestu tudi lumbalna punkcija, ki pa ni povedna in pogosto pokaže le zvišano vrednost beljakovin (16). Zlati diagnostični standard je MRI hrbtenice, ki prikaže mesto in velikost hematoma ter tudi morebitno utesnitev hrbtenjače in znake edema (17). CT-angiografijo uporabljamo v nejasnih primerih in ob sumu na žilne malformacije, od katerih so najpogosteje arterio-venske malformacije (6, 10).

Ob nepojasnjeni etiologiji je smiselno izključiti vezivnotkivne bolezni in motnje strjevanja krvi. Znani so opisi SSEH pri bolnikih s pomanjkanjem faktorja VIII (hemofilija A), faktorja IX (hemofilija B) (18) ter faktorja XI (hemofilija C). Zato smo pri dečku v opisanem prikazu primera izključevali tudi prirojeno ali pridobljeno motnjo strjevanja krvi s presejalnimi in z obširnimi usmerjenimi laboratorijskimi preiskavami (zapiralni čas, določitev aktivnosti faktorjev XI, IX, VIII, VII, X, V, II, I, XIII, antigena in aktivnosti von Willebrandovega faktorja (vWF), agregometrija in lumiaggregometrija) ter z molekularnogenetsko preiskavo, tj. sekvenciranjem naslednje generacije (angl. next generation sequencing, NGS). Motnje strjevanja krvi nismo potrdili.

Zdravljenje SEH je najpogosteje kirurško z nujno dekompenzijo hrbtenjače z laminektomijo. Čeprav je laminektomija trenutno metoda izbire zdravljenja, pa se moramo zavedati, da lahko prekinete lamine pri nekaterih otrocih zavira normalen razvoj mišic in kosti hrbtenice ter dolgoročno vodi v razvoj

kifoze, skolioze ali ukleščenje živčnih struktur (19). V našem primeru smo opravili le hemilaminektomijo. Odstranili smo samo polovico lamine, ohranili pa trnaste odrastke in narastiča mišic na drugi strani pristopa. Zato se je mišično-ligamentni aparat med operacijo le malo poškodoval in ohranila stabilnost hrbtenice, manjša pa je tudi verjetnost kasnejših zapletov.

Če ima bolnik s SEH motnjo strjevanja krvi, moramo najprej poskrbeti za odločno nadomestno zdravljenje s faktorji strjevanja krvi oz. drugimi krvnimi pripravki pred operacijo in po njej. Operaciji se odločimo glede na izraženost nevroloških simptomov. Kirurška odstranitev hematoma je pomembna predvsem zaradi preprečevanja nevroloških posledic. Če ima otrok motnjo strjevanja krvi in res zelo majhen hematom brez hujših nevroloških znakov, je sprva smiselno poskusiti s konzervativnim nadomestnim zdravljenjem s faktorji strjevanja krvi (19, 20). Pri osebah z motnjo strjevanja krvi obstaja namreč nevarnost, da se bo hematom zaradi nezadostne hemostaze

povečeval in povzročil hujše nevrološke simptome, kar lahko pomeni slabši izid zdravljenja, najverjetneje pa tudi potrebo po nujnem kirurškem posegu (21). Zato je nujno odločno nadomestno zdravljenje s koagulacijskimi faktorji oz. drugimi krvnimi pripravki do popolnega izginotja hematoma.

Izid zdravljenja je odvisen predvsem od prvotnega obsega nevrološke okvare. Bolniki s hujšimi nevrološkimi simptomi bodo kljub pravočasnemu odločnemu zdravljenju najverjetneje imeli več trajnih nevroloških posledic (10).

Na izid zdravljenja prav tako vplivata velikost hematoma in čas, ki je pretekel od postavitve diagnoze do operacije. Pri otrocih je ta meja zabrisana, ker pogosto kljub hujšim simptomom na začetku diagnosticiranja ali kljub zaksnitvi ustreznegra zdravljenja hitreje in bolje okrevojo kot odrasli. Tudi v opisanem primeru je prišlo zaradi neprepoznanne bolezni do zakasnitve pričetka zdravljenja. Ob potrjenem SEH smo nujno zdravljenje izvedli takoj, tj. že v 6 urah po prihodu v terciarno bolnišnico. Tudi izid je bil za bolnika optimalen. Napovedni dejavniki za slabši izid zdravljenja so poleg prej navedenih tudi prisotnost koagulopatije, hematom, ki se razteza čez več vretenc, in disfunkcija hrbitenjače, ki je bila prisotna pred operacijo (10). Po podatkih iz literature po spinalnem epiduralnem hematomu popolnoma okreva 65,5 % otrok, podatkov za SSEH pa žal v literaturi ni. Smrtnost zaradi SEH v splošni populaciji ocenjujejo na 2 % (6).

Zaključek

SEH brez predhodne pomembne poškodbe je sicer redko stanje, a je lahko usodno, če ga ne prepoznamo pravočasno. Zato je ob akutni bolečini v vratu in/ali tortikolisu ob odsotnosti povišane telesne temperature ter ob spremljajočih nevroloških znakih tudi ob odsotnosti jasne poškodbe v anamnezi potrebno s slikovno preiskavo izključiti morebitno bolezensko stanje v spinalnem kanalu in odločno ukrepati.

Literatura

1. Zhong W, Chen H, You C, Li J, et al. Spontaneous Spinal Epidural Hematoma. *J Clin Neurosci* 2011; 18: 1490–4.
2. Kim M, Hoffman J, Amin A, Purohit M, et al. Spontaneous Spinal Epidural Hematoma in an Infant. *Pediatr Emerg Care* 2018. Dosegljivo na: https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29489605/?from_term=spontaneous+spinal+epidural+haematoma+in+children&from_pos=1.
3. Patel H, Garg BP. Increasing irritability with sudden onset of flaccid weakness. *Semin Pediatr Neurol* 1996; 3: 192–7.
4. Tewari MK, Tripathi LN, Mathuriya SN, Khan-delwal N, et al. Spontaneous spinal extradural hematoma in children. Report of three cases and a review of the literature. *Childs Nerv Syst* 1992; 8: 53–5.
5. Domenicucci M, Mancarella C, Santoro G, Dugoni DE, et al. Spinal epidural hematomas: personal experience and literature review of more than 1000 cases. *J Neurosurg Spine* 2017; 27(2): 198–208.
6. Carlhan-Ledermann A, Laubscher B, Steinlin M, Ulrich CT, et.al. Spinal epidural hematoma without significant trauma in children: two case reports and review of the literature. *BMC Pediatr* 2020; 20: 77.
7. Ratre S, Yadav Y, Choudhary S, Parihar V. Spontaneous ventral spinal epidural haematoma in a child: A case report and review of literature. *J Neurosci Rural Pract* 2016; 7: 297–99.
8. Liebeskind SD. Epidural Hematoma. 2018. Dosegljivo na: <https://emedicine.medscape.com/article/1137065-overview>.
9. Soltani S, Nogaro MC, Rougelot C, Newell N, et al. Spontaneous spinal epidural haematoma in children. *Eur Spine J* 2019; 28: 2229–36.
10. Jumani DB, Littlewood R, Iyer A, Fellows G, et al. Spontaneous spinal epidural haematoma mimicking meningitis in a 2-year old child – a case report and literature review. *Childs Nerv Syst* 2013; 29: 1795–8.
11. Figueroa J, DeVine JG. Spontaneous spinal epidural hematoma: literature review. *J Spine Surg* 2017; 3: 58–63.
12. Chang CW, Lin LH, Liao HT, Hung KL, et al. Spontaneous Spinal Epidural Hematoma in a 5-year-old Girl: Case Reports. *Acta Paediatr Taiwan* 2002; 43(6): 345–7.
13. Patel H., Boaz J.C., Phillips J.P., Garg B.P. Spontaneous Spinal Epidural Hematoma in Children. *Pediatr Neurol* 1998;19(4):302–7.
14. Khursheed N, Makhdoomi R, Tanki H, Wani A. Spinal Epidural Hematomas in Fast Bowlers: Report of Two Unusual Cases. *Pediatr Neurosurg* 2013; 49: 303–6.
15. Agha BS, Tehan C, Perno J. Torticollis, Not Always the Usual Suspects. *Pediatr Emerg Care* 2011; 27(1): 32–3.
16. Schoonjans A, De Dooy J, Kenis S, Menovsky T, et al. Spontaneous spinal epidural hematoma in infancy: Review of the literature and the “seventh” case report. *Eur J Paediatr Neurol* 2013; 17: 537–42.
17. Abdurrahman A, Ozdemir S, Arslan H, Gonullu E, Bozkina C. Idiopathic Thoracic Spontane-

ous Spinal Epidural Hematoma. *Case Rep Surg* 2016. Dosegljivo na: <https://www.hindawi.com/journals/cris/2016/5430708/>.

18. Afshari FT, Parikh D, Petrik V. Spontaneous Spinal Epidural Haematoma Secondary to Autoimmune Acquired Haemophilia. *Case Rep Neurol* 2019; 10: 353–6.

19. Arya A, Jain P, Kumar A, Gulati S. Spontaneous Spinal Epidural Hematoma in an Infant. *J Child Neurol* 2012; 27: 1577–9.

20. Munoz Gonzales A, Cuello JP, Rodriguez Cruz PM, et al. Spontaneous Spinal Epidural Haematoma: a Retrospective Study of a Series of 13 Cases. *Neurologia* 2015; 7: 393–400.

21. Gopalkrishnan CV, Dhakoji A, Nair S. Spontaneous cervical epidural hematoma of idiopathic etiology: Case report and review of literature. *J Spinal Cord Med* 2012; 35: 113–7.

Urška Vračko

Splošna bolnišnica dr. Franca Derganca« Nova Gorica, Nova Gorica, Slovenija

Jani Breznik

Zdravstveni dom Slovenska Bistrica, Slovenska Bistrica, Slovenija

Matevž Benedičič

Klinični oddelki za nevrokirurgijo, Kirurška klinika, Univerzitetni klinični center Ljubljana, Ljubljana, Slovenija

Barbara Faganel Kotnik

(kontaktna oseba / contact person)
Klinični oddelki za otroško hematologijo in onkologijo, Pediatrična klinika, Univerzitetni klinični center Ljubljana, Ljubljana, Slovenija
e-naslov: barbara.faganel@kclj.si

prispelo / received: 20. 12. 2020

sprejeto / accepted: 18. 4. 2021

Vračko U, Breznik J, et.al. Spinalni epiduralni hematom brez pomembne poškodbe pri otroku. *Slov Pediatr* 2021; 28(2): 98–102. <https://doi.org/10.38031/slovpediatr-2021-2-05>.