

УДК: 616.832.12-006.484.03-053.3

DOI: DOI: 10.24061/2413-4260. XIV.4.54.2024.28

АСТРОЦИТОМА ШИЙНОГО ВІДДІЛУ  
СПИННОГО МОЗКУ У ДИТИНИ  
МАЛЮКОВОГО ВІКУ З КРИВОШИЄЮ

М. Л. Аряєв<sup>1</sup>, Л. Є. Капліна<sup>1</sup>,  
Д. В. Усенко<sup>1</sup>, Л. О. Виходченко<sup>2</sup>,  
М. С. Стрельцов<sup>1</sup>, О. К. Кліманова<sup>1</sup>

Одеський національний медичний університет<sup>1</sup>,  
КНП «Одеська обласна дитяча клінічна лікарня» ООР<sup>2</sup>  
(м. Одеса, Україна)

**Резюме**

Актуальність проблеми визначається досить високою поширеністю пухлин центральної нервової системи у дітей та необхідністю онкологічної настороженості. Презентація клінічного випадку ілюструє необхідність ретельного аналізу початкових клінічних ознак, які зазвичай мають неспецифічний характер і можуть нагадувати симптоми інших захворювань. Випадок із практики описує своєчасну діагностику пілоцитарної астроцитоми у дитини першого року життя з кривошиєю як дебют захворювання. Діагноз ставився на основі ретельного клінічного, неврологічного, імуногістохімічного обстеження, використання методів нейровізуалізації з метою подальшого хірургічного, медикаментозного та променевого лікування.

**Мета роботи** – опис клінічного випадку астроцитоми шийного відділу спинного мозку, яка маніфестувала проявами кривошиї у дитини на першому році життя.

**Матеріал та методи дослідження.** Клінічне, біохімічне, імуногістохімічне та візуалізаційне обстеження дитини малюкового віку.

**Результати дослідження.** Обстежено дитину з проявами кривошиї, яка виникла у віці одинадцяти місяців життя. Під час обстеження виключено варіанти вродженої та набутої кривошиї, запальних захворювань центральної нервової системи. За даними клінічного, неврологічного дослідження та нейровізуалізації встановлено діагноз: доброякісне інтрамедулярне новоутворення спинного мозку, пілоцитарна астроцилома C<sub>5</sub> – Th<sub>2</sub>. Проведено оперативне втручання з частковим видаленням пухлини з гістохімічним дослідженням із наступною відновною терапією та спостереження у віддаленому післяопераційному періоді.

**Висновки.** Раптова поява симптомів кривошиї у дитини першого року життя може свідчити про наявність пухлини спинного мозку. Своєчасна діагностика дозволяє надати дитині високоспеціалізовану допомогу, провести оперативне втручання, сприяти покращенню загального стану та якості життя.

**Ключові слова:** астроцилома спинного мозку; кривошия; дитина першого року життя.

**Вступ**

Пухлини центральної нервової системи (ЦНС) у дітей складають 15 % від усіх злоякісних новоутворень. Інтрамедулярні пухлини спинного мозку у дітей зустрічаються рідко і складають 2-5 % від усіх пухлин ЦНС [1,2,3]. Серед усіх новоутворень нервової системи найчастіше діагностують астроцитоми з ураженням речовини головного мозку, півкуль мозочку, черепно-мозкових нервів, підбурної області та різних відділів спинного мозку.[2,4,5].

Пілоцитарні астроцитоми мають найнижчий ступінь злоякісності і їх відносять до доброякісних пухлин. За структурою вони схожі на здорові тканини, що утруднює визначення їх меж, мають експансивно-інфільтративне зростання і зустрічаються у дітей різного віку. Злоякісні астроцитоми, до яких належать анапластичні і фібрилярні, та гліобластоми притаманні дорослим людям. [2].

Клінічна картина астроцитоми: головний біль, втома, нудота, блювота, труднощі з рівновагою і ходою, постійні або періодичні зміни положення тіла, відмова від самостійної ходи, парези та паралічі, збільшення або втрата маси тіла, передчасне статеве дозрівання. Виявлення пухлин ЦНС у дитячому віці – складне завдання в педіатричній практиці, особливо в малюковому віці. Ознаки новоутворення ховаються під симптомами різних хвороб залежно від локалізації пухлини.[2.5.6].

Клінічні симптоми пухлини шийного відділу спинного мозку у дитини першого року життя зазвичай мають неспецифічний характер і можуть нагадувати інші захворювання і стани, зокрема вроджену або набуту кривошию. Вроджена кривошия розвивається ще в антенатальному періоді і має м'язову і нем'язову причини, маніфестує в неонатальному періоді і проявляється деформацією ший з її боковим згинанням і поворотом голови, при цьому підборіддя повернуто у протилежний бік. Вроджена м'язова кривошия – найпоширеніша форма вродженої кривошиї (від 3,9 до 16 %), частіше зустрічається у хлопчиків, ніж у дівчат (співвідношення 1,5:1). Набута кривошия у дітей зазвичай виникає внаслідок травми чи запалення грудно-ключично-соскоподібного, трапецієподібного м'язів, або подразнення шийних нервів, маніфестує пізніше і має гострий перебіг [7, 8].

Діагностика пухлин ЦНС у дітей спрямована на виявлення клінічних неврологічних симптомів, генетичних та молекулярних маркерів, інструментальних методів візуалізації структур головного та спинного мозку. [2, 9, 10, 11, 12].

Лікування новоутворень ЦНС передбачає оперативне видалення пухлини, іноді з наступним опромінуванням та застосуванням хімотерапевтичних препаратів. В останні роки в терапії використовують моноклональні антитіла. Віддалені наслідки залежать від ступеню злоякісності пухлини, індексу проліферації, її місця роз-

ташування та поширення, можливостей хірургічного втручання, характеру перебігу, структурних особливостей, результатів генетичних і молекулярних досліджень, віку пацієнта. [2, 13, 14].

**Мета роботи:** приведення клінічного випадку пухлини шийного відділу спинного мозку, яка маніфестувала проявами кривоший у дитини на першому році життя.

**Матеріали та методи:** загальноклінічне, біохімічне, імуногістохімічне та візуалізаційне обстеження дитини малюкового віку.

**Результати.** У відділення медичної та фізичної реабілітації КНП «ООДКЛ» ООР поступила дитина віком 1 рік, 1 місяць на відновне лікування спастичної кривоший. Під час поступлення були скарги матері щодо постійного нахилу голови дитини у правий бік. Антенатальний період протікав на фоні Covid-19 на 36-му тижні гестації. Хлопчик народився шляхом кесарського розтину на 40-му тижні гестації за центильною оцінкою антропометричних показників в діапазоні 50-25%. За шкалою Апгар оцінений на 8-8 балів, закричав відразу після народження. Грудне вигодовування розпочато протягом першої години життя. Стато-моторний розвиток на першому році життя відповідав віку. У віці 11 місяців батьки помітили вимушене положення голови дитини із нахилом у правий бік. Протягом наступних двох тижнів

з'явився неспокій і дитина перестала самостійно ходити зі збереженням ходи за сторонньою підтримкою.

Під час огляду дитина час від часу роздратована і сидить з нахилом голови та тулуба праворуч. При пальпації м'язи в області шиї з цього боку дистонічні, болочі. Обвід голови 46 см. Очні щілини D=S, офтальмодинаміка повна. Обличчя симетричне, ковтання не порушене. Тонус в м'язах кінцівок фізіологічний з обох боків, сухожилкові рефлекс викликаються D=S, патологічні рефлекс і судоми не зареєстровані. Менінгеальні знаки відсутні. Функція тазових резервуарів збережена.

У загальному аналізі крові, сечі, біохімічних дослідженнях показники в межах вікової норми. Під час огляду очного дна патологічних змін не виявлено.

Клінічні і неврологічні симптоми, виявлені у дитини, їх час маніфестації на 11-му місяці життя не відповідали діагнозу спастичної кривоший. При проведенні диференційної діагностики виявлений симптомокомплекс нагадував пухлинне утворення у шийному відділі спинного мозку. Дитині проведено МРТ шийного та грудного відділу хребта. В інтрадуральному просторі та в речовині спинного мозку діагностовано об'ємне утворення на рівні C<sub>6</sub> – Th<sub>3</sub> з підвищенням інтенсивності МР-сигналу від спинного мозку по периферії утворення, зменшення шийного лордозу, випрямлену вісь хребта. Конфігурація хребців і структура спинного мозку не змінені, патологічні зміни в м'яких тканинах відсутні (рис 1).

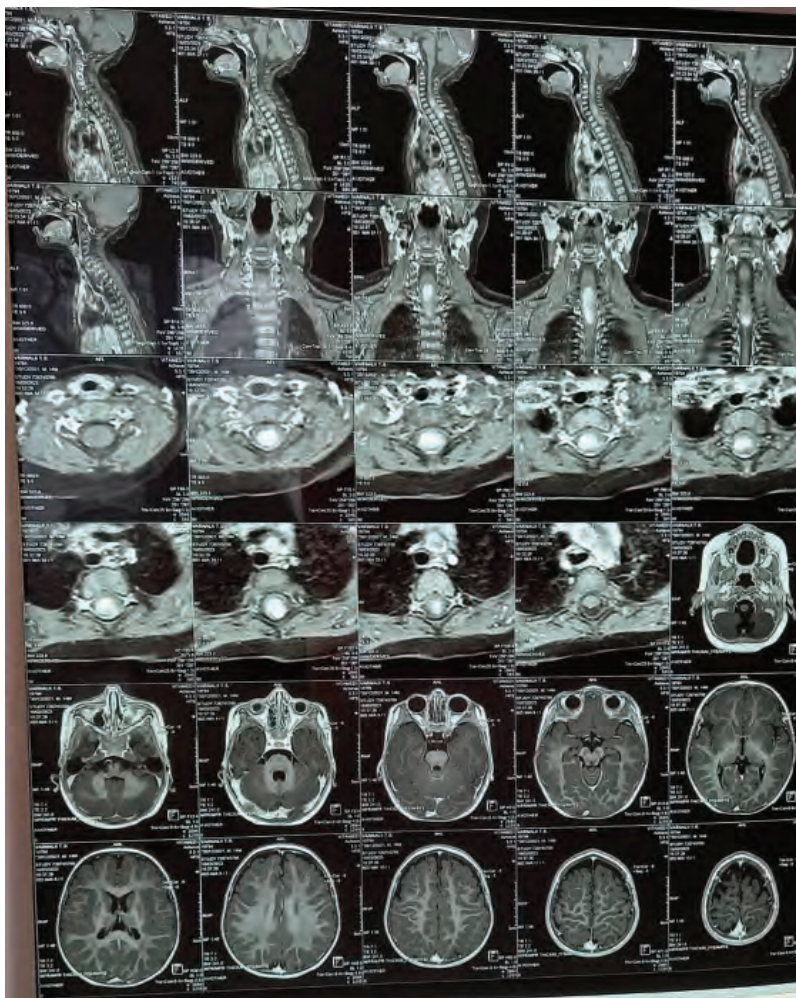
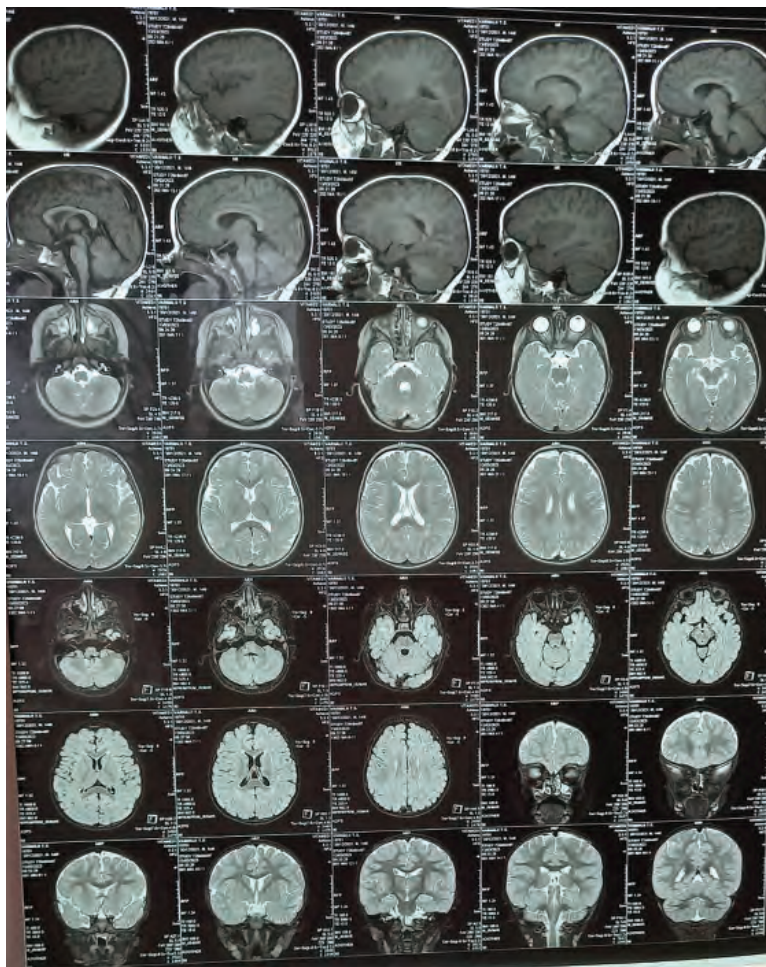


Рис. 1. Магнітно-резонансна томограма шийного та грудного відділів хребта.

На КТ головного мозку збережена диференціація білої та сірої речовини, наявні осередки лейкомаляції у перивентрикулярній області. Змін МР-сигналу від стовбуру мозку, мозолистого тіла, таламусу, суб-

станції пігма, внутрішньої капсули, зорових бугрів, півкуль та мигдаликів мозочка не виявлено. Бокові шлуночки та конвексимальні простори нормального розміру (рис. 2).



**Рис. 2.** Комп'ютерна томограма головного мозку.

На МРТ шийного відділу спинного мозку з контрастуванням наявна пухлина розмірами 36x10,5x13,5 мм інтрадуральної та інтрамедулярної локалізації, яка має однорідний гіперінтенсивний сигнал на  $T_2$ , гіпоінтенсивний МР сигнал на  $T_1$ , нерівне плямисте накопичення контрасту у верхньому та нижньому відділах та перифокальним набряком до 9 мм. Розташування корінців периферичних нервів скрізь отвори хребетного стовпа не змінене (рис. 3).

Хлопчика переведено до відділення нейрохірургії. Проведено оперативне втручання з видаленням 50 % пухлинного утворення. Загальний стан в післяопераційному періоді був задовільним. Імуногістохімічне дослідження виявило пілоцитарну астроцитому I типу з експресією пухлинними клітинами та низьким індексом проліферації.

Остаточний діагноз: Доброякісна пілоцитарна астроцитома шийного відділу спинного мозку  $C_5 - Th_2$ , неповне видалення та декомпресія пухлини, стан після оперативного втручання.

Стан дитини після операції задовільний, адекватно спілкується з батьками, збережені когнітивні функції, відсутні симптоми ураження черепно-мозкових та периферичних нервів, купувався больовий синдром. Рухливість в шийному відділі хребта та лівої руки незначно обмежена, голова трохи нахилена уперед, відсутня самостійна хода.

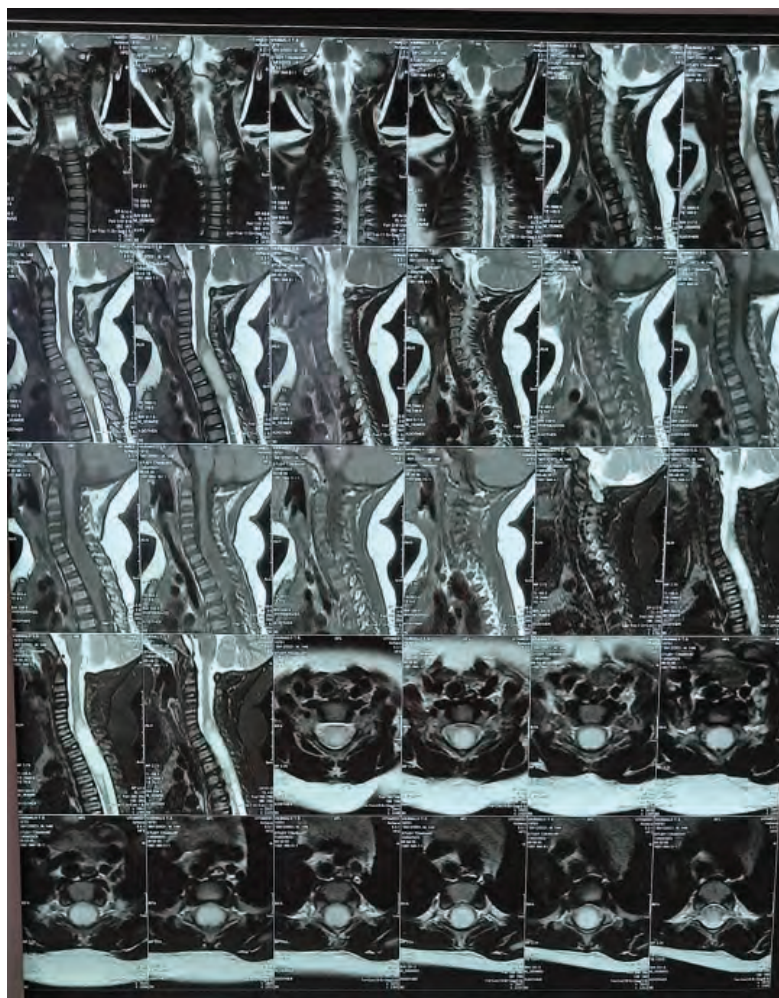
Протягом одинадцяти місяців хлопчик отримував відновну терапію, як результат якої у дитини повністю регресували патологічні симптоми, нормалізувався тонус м'язів та об'єм рухів у кінцівках, покращилися когнітивні функції, відновилася самостійна хода. На МРТ шийного відділу спинного мозку збільшення розмірів пухлини не зареєстровано.

Таким чином, раптова поява кривоший у дитини першого року життя, за відсутності анамнестичних даних травматичного пошкодження, повинна бути підставою для диференційної діагностики пухлини спинного мозку або задньої черепної ямки.

### Висновки

1. Лікарям педіатричного профілю та сімейним лікарям треба проявляти ретельну увагу у разі виявлення у малюків кривоший протягом першого року життя, без анамнестичних даних травматичного ушкодження в інтранатальному та постнатальному періодах, яке може бути маскою онкологічного захворювання.

2. Своєчасна діагностика та лікування пухлини спинного мозку у дітей сприяє запобіганню несприятливих наслідків, інвалідності та малюкової смертності внаслідок онкологічного захворювання.



**Рис. 3. Магніто-резонансна томограма шийного відділу хребта з контрастуванням.**

#### **Перспективи подальших досліджень**

Злоякісні пухлини ЦНС у дітей стоять на другому місці після онкогематологічних захворювань і можуть маніфестувати під маскою інших хвороб. Сімейним лікарям, педіатрам, неонатологам, хірургам, ортопедам, неврологам треба мати онкологічну настороженість щодо появи незвичних симптомів, таких як порушення рухів або втрата набутих навичок у малюка.

#### **Література:**

1. Misove A, Vicha A, Broz P, Vanova K, Sumerauer D, Stolova L, et al. Integrated genomic analysis reveals actionable targets in pediatric spinal cord low-grade gliomas. *Acta Neuropathol Commun.* 2022;10(1):143. DOI: <https://doi.org/10.1186/s40478-022-01446-0>
2. Педаченка ЄГ, редактор. Стандартизація в нейрохірургії. Частина 5. Дитяча нейрохірургія. 1-е вид. Київ: ДУ «ІНХ НАМНУ»; 2020. 352 с.
3. AlRaddadi KK, Farrash F, Baesa S, Ahmed AM. Primary spinal intramedullary astrocytomas; long-term outcomes and literature review. *Interdisciplinary Neurosurgery.* 2022;27:101401. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.inat.2021.101401>
4. Clarke M, Mackay A, Ismer B, Pickles JC, Tatevossian RG, Newman S, et al. Infant High-Grade Gliomas Comprise Multiple Subgroups Characterized by Novel Targetable Gene Fusions and Favorable Outcomes. *Cancer Discov.* 2020;10(7):942-63. DOI: <https://doi.org/10.1158/2159-8290.CD-19-1030>
5. Rodriguez Gutierrez D, Jones C, Varlet P, Mackay A, Warren D, Warmuth-Metz M, et al. Radiological Evaluation of Newly Diagnosed Non-Brainstem Pediatric High-Grade Glioma in the HERBY Phase II Trial. *Clin Cancer Res.* 2020;26(8):1856-65. DOI: <https://doi.org/10.1158/1078-0432.CCR-19-3154>
6. Hani U, Tebha SS, Bakhshi SK, Shamim MS. Intramedullary spinal cord lesions in children. *J Pak Med Assoc.* 2021;71(2(B)):775-7.
7. Brett-Fleegler M. Approach to neck stiffness in children [Internet]. UpToDate. 2023 [update 2023 Apr 11; cited 2024 Sep 7]. Available from: <https://www.uptodate.com/contents/approach-to-neck-stiffness-in-children>
8. El Bouhmadi K, Oukessou Y, Saout Arrih B, Rouadi S, Abada R, Mahtar M. The outcomes of congenital torticollis delayed surgery in older children: A case series. *Int J Surg Case Rep.* 2023 May;106:108144. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2023.108144>
9. Lopez GY, Van Ziffle J, Onodera C, Grenert JP, Yeh I, Bastian BC, et al. The genetic landscape of gliomas arising after therapeutic radiation. *Acta Neuropathol.* 2019;137(1):139-50. DOI: <https://doi.org/10.1007/s00401-018-1906-z>

**Принципи біоетики.** При написанні статті враховані усі етичні норми та стандарти клінічних досліджень.

**Конфлікт інтересів.** Автори зазначають відсутність конфлікту інтересів.

**Джерело фінансування.** Стаття підготовлена для публікації без будь-якої фінансової підтримки.

10. Lucas CG, Solomon DA, Perry A. A review of recently described genetic alterations in central nervous system tumors. *Hum Pathol.* 2020;96:56-66. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.humpath.2019.10.009>
11. Rodriguez Gutierrez D, Jones C, Varlet P, Mackay A, Warren D, Warmuth-Metz M, et al. Radiological Evaluation of Newly Diagnosed Non-Brainstem Pediatric High-Grade Glioma in the HERBY Phase II Trial. *Clin Cancer Res.* 2020;26(8):1856-65. DOI: <https://doi.org/10.1158/1078-0432.CCR-19-3154>
12. Kapitancuke M, Rutkauskaitė V, Zagorskis R, Bernotavicius G, Lapteva O, Rascon J. LGG-03. Pediatric spinal deformities concomitant with spinal cord pilocytic astrocytoma. *Neuro-Oncology.* 2022;24(1): i87. DOI: <https://doi.org/10.1093/neuonc/noac079.319>
13. Hu J, Liu T, Han B, Tan S, Guo H, Xin Y. Immunotherapy: A Potential Approach for High-Grade Spinal Cord Astrocytomas. *Front. Immunol.* 2021;11:582828. DOI: <https://doi.org/10.3389/fimmu.2020.582828>
14. Hersh AM, Jallo GI, Shimony N. Surgical approaches to intramedullary spinal cord astrocytomas in the age of genomics. *Front Oncol.* 2022;12:982089. DOI: <https://doi.org/10.3389/fonc.2022.982089>

## ASTROCYTOMA OF THE CERVICAL SPINAL CORD IN AN INFANT WITH TORTICOLLIS

*M. Aryayev<sup>1</sup>, L. Kaplina<sup>1</sup>, D. Usenko<sup>1</sup>, L. Vykhodchenko<sup>2</sup>, M. Streltsov<sup>1</sup>, O. Klymanova<sup>1</sup>*

Odesa National Medical University<sup>1</sup>  
(Odesa, Ukraine)

CNE «Odesa Regional Children's Clinical Hospital» ORC<sup>2</sup>  
(Odesa, Ukraine)

### Summary.

The relevance of the problem is determined by the rather high prevalence of central nervous system (CNS) tumors in children and the need for oncologic vigilance. The presentation of the clinical case illustrates the need for careful analysis of the initial clinical signs, which are usually nonspecific and may resemble symptoms of other diseases. A case from practice describes the timely diagnosis of pilocytic astrocytoma in a child of the first year of life with torticollis as the debut of the disease. The diagnosis was made on the basis of a thorough clinical, neurological, and immunohistochemical examination and the use of neuroimaging techniques with the goal of further surgical, medical, and radiation treatment.

**The aim of the work.** Description of a clinical case of astrocytoma of the cervical spinal cord, which manifested itself as torticollis in a child in the first year of life.

**Material and methods of the research.** Clinical, biochemical, immunohistochemical, and imaging examination of a child of toddler age.

**Results of the research.** A child with manifestations of torticollis at the age of eleven months was studied. Variants of congenital and acquired torticollis and inflammatory diseases of the central nervous system were excluded. According to clinical, neurological, and neuroimaging examinations, the diagnosis was made: benign intramedullary neoplasm of the spinal cord, pilocytic astrocytoma C5-Th2. Surgical intervention was performed with partial removal of the tumor with histochemical examination, followed by restorative therapy and observation in the distant postoperative period.

**Conclusions.** Sudden appearance of symptoms of torticollis in a child in the first year of life may indicate the presence of a CM tumor. Early diagnosis allows to provide the child with highly specialized care, perform surgical intervention, and contribute to the improvement of the general condition and quality of life.

**Keywords:** Astrocytoma of the Spinal Cord; Torticollis; Child of the First Year of Life

### Контактна інформація:

**Аряєв Микола Леонідович** – член-кореспондент НАМН України, д.мед.н., професор, завідувач кафедри педіатрії Одеського національного медичного університету (м.Одеса, Україна)

**e-mail:** aryayev.nl@gmail.com

**ORCID:** <https://orcid.org/0000-0003-3181-7518>

**Scopus Author ID:** <https://www.scopus.com/authid/detail.uri?authorId=6508021037>

**Researcher ID:** <https://www.webofscience.com/wos/author/record/AAA-2739-2020>

**Капліна Лариса Євгенівна** – к.мед.н., доцент, доцентка кафедри педіатрії Одеського національного медичного університету (м. Одеса, Україна)

**e-mail:** lkaplina@ukr.net

**ORCID:** <https://orcid.org/0000-0002-1046-4955>

**Scopus Author ID:** <https://www.scopus.com/authid/detail.uri?authorId=58173743100>

**Researcher ID:** <https://www.webofscience.com/wos/author/record/GQO-9717-2022>

**Усенко Дар'я Вячеславівна** – доктор філософії, асистентка кафедри педіатрії Одеського національного медичного університету (м. Одеса, Україна)

**e-mail:** dariav.usenko@gmail.com

**ORCID:** <https://orcid.org/0000-0003-4143-2099>

**Scopus Author ID:** <https://www.scopus.com/authid/detail.uri?authorId=58174007500>

**Researcher ID:** <https://www.webofscience.com/wos/author/record/ABD-40412021>

### Contact information:

**Aryayev Mykola Leonidovych** – Corresponding Member of the National Academy of Medical Sciences of Ukraine, MD, PhD, Professor, Head of the Department of Paediatrics, Odesa National Medical University (Odesa, Ukraine)

**e-mail:** aryayev.nl@gmail.com

**ORCID:** <https://orcid.org/0000-0003-3181-7518>

**Scopus Author ID:** <https://www.scopus.com/authid/detail.uri?authorId=6508021037>

**Researcher ID:** <https://www.webofscience.com/wos/author/record/AAA-2739-2020>

**Kaplina Larysa Yevhenivna** – PhD, Associate Professor, Associate Professor of the Department of Paediatrics, Odesa National Medical University (Odesa, Ukraine)

**e-mail:** lkaplina@ukr.net

**ORCID:** <https://orcid.org/0000-0002-1046-4955>

**Scopus Author ID:** <https://www.scopus.com/authid/detail.uri?authorId=58173743100>

**Researcher ID:** <https://www.webofscience.com/wos/author/record/GQO-9717-2022>

**Usenko Daria V.** – Doctor of Philosophy, Assistant Professor of the Department of Paediatrics, Odesa National Medical University (Odesa, Ukraine)

**e-mail:** dariav.usenko@gmail.com

**ORCID:** <https://orcid.org/0000-0003-4143-2099>

**Scopus Author ID:** <https://www.scopus.com/authid/detail.uri?authorId=58174007500>

**Researcher ID:** <https://www.webofscience.com/wos/author/record/ABD-40412021>

**Виходченко Лариса Олександрівна** – завідувачка відділенням медичної реабілітаційної допомоги КНП «Одеська обласна дитяча клінічна лікарня» ООП (м.Одеса, Україна)  
**e-mail:** l.vykhodchenko@gmail.com  
**ORCID:** <https://orcid.org/0009-0005-5823-607X>  
**Researcher ID:** <https://www.webofscience.com/wos/author/record/GZH-1747-2022>

**Кліманова Олена Кемалівна** – студентка 4 курсу 8 групи Одеського національного медичного університету (м. Одеса, Україна)  
**e-mail:** elena.klymanova@gmail.com  
**ORCID:** <https://orcid.org/0009-0005-2011-7147>

**Vykhodchenko Larysa Oleksandrivna** – Head of the Department of Medical Rehabilitation Care of the Odesa Regional Children's Clinical Hospital (Odesa, Ukraine)  
**e-mail:** l.vykhodchenko@gmail.com  
**ORCID:** <https://orcid.org/0009-0005-5823-607X>  
**Researcher ID:** <https://www.webofscience.com/wos/author/record/GZH-1747-2022>

**Klimanova Olena Kemalivna** – 4th year student of the 8th group of Odesa National Medical University (Odesa, Ukraine)  
**e-mail:** elena.klymanova@gmail.com  
**ORCID:** <https://orcid.org/0009-0005-2011-7147>



Надійшло до редакції 27.07.2024 р.  
Підписано до друку 15.09.2024 р.