

Otrzymano: 2004.12.20  
Zaakceptowano: 2005.04.04

## Lenticulostriate vasculopathy in a newborn with congenital CMV infection

Patologiczny obraz naczyń prążkowiowo-wzgórzowych u noworodka z wrodzoną infekcją CMV

Małgorzata Wilczyńska<sup>1</sup>, Ewa Gulczyńska<sup>2</sup>, Krzysztof Rybka<sup>1</sup>, Artur Kobielski<sup>1</sup>,  
Tadeusz Biegański<sup>1</sup>

<sup>1</sup> Zakład Diagnostyki Obrazowej, Instytut „Centrum Zdrowia Matki Polki”, Łódź, Polska

<sup>2</sup> Klinika Neonatologii, Instytut „Centrum Zdrowia Matki Polki”, Łódź, Polska

Adres autora: Małgorzata Wilczyńska, Zakład Diagnostyki Obrazowej, Instytut „Centrum Zdrowia Matki Polki”, ul. Rzgowska 281/289, 93-338 Łódź, Polska, e-mail: jrwil@post.pl

### Summary

<b>Background:</b>	Lenticulostriate vasculopathy (LSV) is rare pathological picture found during ultrasound imaging of CNS in neonates with cytomegalovirus congenital infection.
<b>Case report:</b>	Preterm infant born by caesarean section in 31 <sup>st</sup> week of gestation, with minimal clinical and laboratory signs of CMV infection, presented with evident CT pathology and particular ultrasound picture of LSV.
<b>Conclusion:</b>	Ultrasound evaluation of LSV presence and its advance could be important diagnostic procedure especially in patients with clinically „silent” congenital CNS infections.
<b>Key words:</b>	congenital CNS infection • lenticulostriate vasculopathy • doppler ultrasound • preterm infant
<b>PDF file:</b>	<a href="http://www.polradiol.com/pub/pjr/vol_70/nr_3/6780.pdf">http://www.polradiol.com/pub/pjr/vol_70/nr_3/6780.pdf</a>

### Wstęp

Nieprawidłowy obraz naczyń prążkowiowo-wzgórzowych u noworodków i niemowląt (ang. *lenticulostriate vasculopathy* – LSV) po raz pierwszy został opisany przez Granta i wsp. [6] w 1985 roku. LSV towarzyszy wielu wrodzonym i nabytym procesom chorobowym, między innymi wrodzonym infekcjom ośrodkowego układu nerwowego (OUN) o typie TORCH, najczęściej cytomegalii i różyczce [1, 8].

### Opis przypadku

Noworodek płci żeńskiej z C I P I, urodzony drogą cięcia cesarskiego w 31 tygodniu życia płodowego, z masą ciała 1150 gramów, oceniony testem Apgar na 7/8 punktów. Ultrasonograficznym badaniem prenatalnym stwierdzono wewnątrzmaciczne zahamowanie wzrostu płodu (oceni-

na -3 hbd) oraz podejrzewano występowanie wady rozwojowej OUN. Ultrasonograficzne cechy rozpoczynającej się niewydolności krążenia stanowiły bezpośrednie wskazanie do porodu zabiegowego. Badanie kliniczne noworodka na sali porodowej, poza cechami wewnątrzmacicznego zahamowania wzrostu i wcześniactwem, wykazało występowanie małopłytkowości. Noworodek był wydolny oddechowco, a płuca radiologicznie były prawidłowo upowietrznione. Również na zdjęciu klatki piersiowej, zwłaszcza w obrębie widocznych fragmentów kości ramiennych, stwierdzono cechy osteopenii, najprawdopodobniej związanej z wcześniactwem. W badaniu morfotycznym krwi obserwowano leukopenię (3,34 K/ $\mu$ L), z towarzyszącą granulocytopenią (14%), limfocytosą (80%) oraz obecnością limfocytów odczynowych. Poziom krwinek płytkowych wynosił 34 K/ $\mu$ L. Podobnego rzędu małopłytkowość (w granicach 30–50 K/ $\mu$ L) utrzymywała się w czasie całej hospitalizacji

w Klinice Neonatologii. Podejrzewając na podstawie obrazu klinicznego i badań laboratoryjnych infekcję wewnątrzmaciczną z grupy TORCH, wykonano badania serologiczne, które potwierdziły zakażenie wirusem cytomegalii (CMV). Stężenie przeciwciał anti-CMV klasy IgM wynosiło 2 UA/ml, zaś przeciwciał klasy IgG – 97 UA/ml. W badaniu płynu mózgowo-rdzeniowego stwierdzono: płyn mózgowo-rdzeniowy żółty przezroczysty, cytoza 6 komórek, białko 169 mg/dl, poziom glukozy 6 mg/dl. W dopplerowskim badaniu echokardiograficznym serca stwierdzono niewielkie zmiany strukturalne. Utrzymywał się niewielkiego stopnia przeciek przez otwór owalny, nie znaleziono cech przetrwałego przewodu tętniczego. W prawym przedsionku uwidoczniło siatkę Chiarięgo. Wykryto niedomykalność zastawki trójdzielnej I/II stopnia z gradientem wynoszącym 42 mmHg. Noworodka konsultowano okulistycznie w 5 i 33 dobie życia. Aparat ochronny, przedni odcinek i dno oczu w granicach normy – bez cech *chorioretinitis*. Badanie przesiewowe słuchu było dwukrotnie nieprawidłowe.

W badaniu ultrasonograficznym, przeprowadzonym w I dobie życia pacjenta, stwierdzono niesymetryczne poszerzenie i zniekształcenie światła komór bocznych oraz zwapnienia w wyściółce komór. W rzucie zwojów podstawy oraz wzgórz uwidoczniło mnogie, drobne punkcikowate echa, odpowiadające patologicznie zmienionym naczyniom prążkowiowo-wzgórzowym, z przewagą zmian po stronie prawej [ryc. 1]. Zastosowanie opcji dopplerowskiej potwierdziło naczyniowy charakter powyższych zmian. Zarejestrowano prawidłowy charakter przepływu w badanych naczyniach [ryc. 2]. Tomografia komputerowa głowy wykazała istnienie pojedynczych zwapnień w obu półkulach mózdzku, o średnicy 4 mm po stronie prawej i 1,5 mm po stronie lewej. Stwierdzono także nadnamiotowo, masywne zwapnienia podwyściółkowe w układzie komorowym oraz w splocie naczyniowym lewej komory bocznej. Zmianom tym towarzyszyło asymetryczne posze-



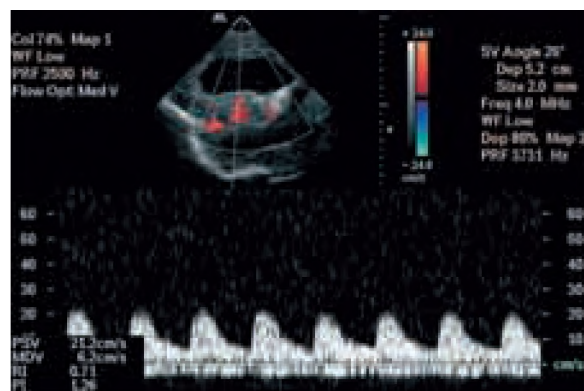
**Figure 1.** Coronal scan. Punctate hyperechogenic LSV changes in the thalami, especially on the right side. Postinfectious ventriculomegaly.

**Rycina 1.** Przekrój wieńcowy. Punkcikowate hiperechogeniczne struktury w rzucie wzgórz, szczególnie po stronie prawej, odpowiadające LSV. Wodogłowię pozapalne.

zenie komór bocznych z rozdęciem i zniekształceniem lewej komory bocznej, wtórny zanik lewej półkuli mózgu w obrębie płata skroniowego i ciemieniowego oraz niewielkie poszerzenie przymózgowych przestrzeni płynowych po tej samej stronie. Zmian o charakterze LSV w badaniu TK nie uwidoczniło.

## Dyskusja

Hiperechogeniczny obraz naczyń prążkowiowo-wzgórzowych okolicy wzgórz i zwojów podstawy, odpowiadający zmianom o charakterze LSV, to patologicznie zmienione naczynia, które w badaniu ultrasonograficznym dają obraz zmian liniowych, rozgałęzionych (ang. *candle shaped*), punkcikowatych lub mieszanych [2, 4]. W badaniu histopatologicznym, w pogrubiałych ścianach poszerzonych naczyń i okołonaczyniowo, stwierdza się odkładanie amorficznych związków zasadochłonnych oraz depozytów żelaza i wapnia. Nie występują zmiany o charakterze zwłóknienia i szkliwienia [8]. Zmiany o typie LSV dotyczą 0,4% zdrowych i 1,9 – 5,8% noworodków z klinicznymi cechami wrodzonej infekcji o typie TORCH [8]. Nie określono dotychczas przyczyny występowania LSV u zdrowych dzieci [1, 4]. Patologia naczyń prążkowiowo-wzgórzowych może towarzyszyć różnym procesom chorobowym. Występuje w przebiegu wrodzonych infekcji OUN, najczęściej w cytomegalii i różyczce [2, 5], w zmianach niedokrwienno-niedotlenieniowych [3], aberacjach chromosomalnych (trisomia 13 chromosomu) [7], wrodzonych chorobach serca [3], fetopatii cukrzycowej i wielu innych [8]. Nieprawidłowy obraz naczyń prążkowiowo-wzgórzowych w rutynowym badaniu USG rozpoznawany jest dość często i zdaniem Schefer-Kaufman i wsp. [9] nie należy go ściśle wiązać z wewnątrzmaciczną infekcją typu TORCH. Zdaniem tych autorów LSV nie może być patognomonicznym wykładnikiem procesu zapalnego, chyba że istnieją jego kliniczne wykładniki. Niemniej jednak, wielu autorów wiąże hiperechogeniczny obraz naczyń prążkowiowo-wzgórzowych z wrodzonymi infekcjami tego typu [1, 2, 8]. Najlepszą metodą w obrazowaniu LSV jest badanie ultrasonograficzne z jednoczesną



**Figure 2.** Parasagittal color Doppler scan showing the vascular nature of thalamic echogenicities. Normal wave form of lenticulostriate blood flow.

**Rycina 2.** Przekrój przystrzałkowy, obrazujący naczyniowy charakter zmian w rzucie wzgórz. Prawidłowe spektrum przepływu w naczyniach prążkowiowo-wzgórzowych.

oceną dopplerowską [1, 8]. Badanie TK, a nawet rezonans magnetyczny u większości pacjentów z LSV nie uwidacznia patologii naczyń prążkowiowo-wzgorzowych [1, 8]. Podobnie u naszego pacjenta zmiany LSV nie zostały uwidocznione w badaniu TK.

Obecność izolowanych zmian o typie LSV, jak uważają Cabanas i wsp. [2] oraz Weber i wsp. [10], nie jest niekorzystnym czynnikiem rokowniczym rozwoju noworodka. Zmiany LSV należy oceniać w kontekście przyczyny ich wystąpienia

oraz aktualnego stanu klinicznego noworodka. Należy również monitorować progresję zmian, ponieważ ocenia się, że późne następstwa w postaci deficytów neurologicznych mogą dotyczyć 18,9 – 55,0% pacjentów z LSV [8].

Ultrasonograficzna ocena LSV oraz stopień jego zaawansowania jest naszym zdaniem ważnym, pomocniczym elementem diagnostycznym, szczególnie u tych pacjentów, u których wrodzone infekcje OUN przebiegają bezobjawowo.

## Piśmiennictwo:

1. Ben-Ami T, Yousefzadeh D, Backus M et al.: Lenticulostrate vasculopathy in infants with infections of the central nervous system – sonographic and Doppler findings. *Pediatr Radiol*, 1990; 20: 575–579.
2. Cabañas E, Pellicer A, Morales C et al.: New pattern of hyperechogenicity in thalamus and basal ganglia studied by color Doppler flow imaging. *Pediatr Neurol*, 1994; 10: 109–116.
3. Coley BD, Rusin JA, Boue DR: Importance of hypoxic/ischemic conditions in the development of cerebral lenticulostrate vasculopathy. *Pediatr Radiol*, 2000; 30: 846–855.
4. El Ayoubi M, de Bathmann O, Monset-Couchard M: Lenticulostrate echogenic vessels: clinical and sonographic study of 70 neonatal cases. *Pediatr Radiol*, 2003; 33: 697–703.
5. Estroff JA, Parad RB, Teele RL et al.: Echogenic vessels in the fetal thalami and basal ganglia associated with cytomegalovirus infection. *J Ultrasound Med*, 1992; 11: 686–688.
6. Grant EG, Williams AL, Schellinger D et al.: Intracranial calcification in the infant and neonate: evaluation by sonography and CT. *Radiology*, 1985; 157: 63–68.
7. Kriss VM, Kriss TC: Doppler sonographic confirmation of thalamic and basal ganglia vasculopathy in three infants with trisomy 13. *J Ultrasound Med*, 1996; 15: 523–526.
8. Makhoul IR, Eisenstein I, Sujov P et al.: Neonatal lenticulostrate vasculopathy: further characterization. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*, 2000; 88: F410–F414.
9. Shefer-Kaufman N, Mimouni FB, Stavorovsky Z et al.: Incidence and clinical significance of echogenic vasculature in the basal ganglia of newborns. *Am J Perinatol*, 1999; 16: 315–319.
10. Weber K, Riebel T, Nasir R: Hyperechoic lesions in the basal ganglia: an incidental sonographic finding in neonates and infants. *Pediatr Radiol*, 1992; 22: 182–186.