

УДК 616.831-006.311.03-053.2-07-089(048.8)

Кавернозные мальформации головного мозга у детей (обзор литературы и анализ собственных наблюдений)

Орлов Ю.А., Орлов М.Ю.

Институт нейрохирургии им. акад. А.П. Ромоданова АМН Украины, г. Киев

Представлены обзор литературы и результаты анализа 34 собственных наблюдений авторов кавернозных мальформаций головного мозга у детей. Рассмотрены варианты клинических проявлений заболевания, современные методы диагностики и лечебная тактика, которая определяется состоянием пациента, локализацией процесса, типом клинического течения, выраженностью геморрагии, степенью объемного воздействия и дислокационного синдрома. Результаты хирургического лечения кавернозных мальформаций, локализирующихся в полушариях большого мозга, можно признать удовлетворительными, тогда как кавернозные мальформации стволочно-подкорковой локализации требуют дальнейшего изучения.

Ключевые слова: кавернозная мальформация (КМ), головной мозг, дети, диагностика, лечение.

Вступление. Кавернозные мальформации относятся к врожденным очаговым сосудистым аномалиям, наиболее часто встречающимся в области нервной системы, составляя 5—25% всех сосудистых аномалий организма человека [7, 10,30]. Гистологически КМ характеризуются конгломератом сосудов различного диаметра, между которыми отсутствует клеточная строма. Сосуды выстланы единичным слоем эндотелиальных клеток, в стенках сосудов отсутствуют гладкомышечные и эластические волокна. Эти аномалии относят к гамартомам, то есть к образованиям, не проявляющим митотической активности, а увеличивающим свои размеры по другим механизмам [10,42].

Среди КМ ЦНС выделяют спорадические случаи и наследственные (семейные), которые не отличаются между собой ни морфологическими особенностями, ни клиническими проявлениями [27,29,44]. Локализация КМ в ЦНС весьма разнообразна. Они могут располагаться в различных отделах головного мозга (полушария большого мозга, мозжечок, подкорковые структуры, ствол мозга) [10,29,44] и в спинном мозге [2,4]. Диагностика КМ значительно улучшилась с внедрением в клиническую практику нейровизуализирующих методик обследования (КТ, МРТ, МРА).

Четверть этих сосудистых аномалий ЦНС встречается у детей [30]. Основными клиническими проявлениями КМ у них являются острые и подострые внутримозговые кровоизлияния. Артерио-венозные и кавернозные мальформации считаются двумя основными причинами внутримозговых кровоизлияний у детей [27]. Среди всех сосудистых аномалий ЦНС у детей каверномы составляют от 18 [46] до 42% [23]. КМ у детей (по сравнению с взрослыми) характе-

ризуются более выраженным геморрагическим потенциалом [23,24,27,44]. Кроме того, КМ головного мозга могут проявляться эпилептическими приступами или нарастающим неврологическим дефицитом. Пик обнаружения данной патологии приходится на младший (до 3 лет) и старший (11-18 лет) детский возраст [13,19,20,21,49].

Лечебная тактика при КМ ЦНС определяется характером и выраженностью клинических проявлений, размерами и локализацией мальформаций. При обнаружении бессимптомно протекающих КМ обычно ограничиваются длительным наблюдением, так как ежегодный риск геморрагии составляет в среднем не более 3% [44], колеблясь, по данным различных авторов [14], от 0,25% до 6,4%. При массивных КМ, располагающихся в области полушарий большого мозга, при значительных по объему кровоизлияниях, выраженном неврологическом дефиците вопрос об их хирургическом удалении сомнений не вызывает. При подкорково-стволовой локализации подходы к хирургическому вмешательству не столь однозначны [32,40,41]. Если мальформация близко прилежит к пиальной оболочке или эпендиме, хирургическое лечение оправдано, так как оно не приводит к значительному углублению неврологического дефицита. Глубинное же расположение КМ ограничивает возможности хирургического удаления КМ по тем же причинам. Распространенное радиохирургическое лечение при глубинном расположении КМ с целью предупреждения рецидивов геморрагий у взрослых в педиатрической практике пока используется редко [34]. Эпилептиформный тип течения заболевания требует хирургической помощи только в случаях частых тяжелых приступов, не поддающихся медикаментозной терапии.

Материалы и методы. В Институте нейрохирургии им. акад. А.П. Ромоданова АМН Украины в последние 5 лет находились на обследовании и лечении 34 ребенка (мальчиков 21, девочек 13) в возрасте до 18 лет с КМ головного мозга. В предыдущие годы данная патология до операции практически не диагностировалась и являлась случайной находкой при гистологическом исследовании удаленной на операции внутримозговой гематомы. Возраст больных представлен в табл. 1.

Таблица 1. Возраст детей с кавернозными мальформациями головного мозга

Всего детей	Возраст				
	до 1 года	от 1 года до 3 лет	от 3 до 7 лет	от 7 до 14 лет	от 14 до 18 лет
34	5	2	4	12	11

Локализация КМ была весьма разнообразной (табл. 2). Чаще всего они располагались в полушариях большого мозга (23 ребенка), реже — в подкорково-стволовых структурах (11). Субтенториальную локализацию отмечали у 3 больных, супратенториальную — у 31.

Таблица 2. Локализация кавернозных мальформаций у детей

Расположение КМ, область	Лобная	Височная	Теменная	Затылочная	Подкорковая	Стволовая	Мозжечковая
Количество детей	10	5	6	2	8	2	1

Клинические проявления КМ чаще характеризовались острым началом по геморрагическому типу (19 детей) — резкая головная боль, рвота, нарушение сознания, развитие очаговых неврологических нарушений. У 15 детей первыми клиническими проявлениями были генерализованные эпилептические приступы с очаговым компонентом.

Объем дополнительного обследования больных представлен в табл. 3 и включал КТ, МРТ, МРТ-ангиографию (МРТ-АГ), селективную ангиографию (САГ), ЭЭГ, однофотонную эмиссионную компьютерную томографию (ОФЭКТ) с туморотропным изотопом, ультразвуковую нейросонографию (УЗИ).

Таблица 3. Дополнительные методы обследования детей с КМ головного мозга

КТ	МРТ	МРТ-АГ	САГ	ЭЭГ	ОФЭКТ	УЗИ
34	34	23	28	17	21	5

Оперировали 12 (35,3%) из 34 больных. У всех детей операции были направлены на удаление кровоизлияния и сосудистой мальформации.

Результаты и их обсуждение. КМ ЦНС встречаются как спорадические и наследственные (семейные) случаи врожденных уродств развития сосудов [29,44]. Данная патология достаточно хорошо изучена у взрослых и реже описывается у детей. Так, до 1993 г. в англоязычной специальной литературе было описано всего 112 наблюдений каверном ЦНС у детей [30]. Внедрение в клиническую практику МРТ увеличило возможность выявления такой патологии и в 1999 г. количество обнаруженных КМ составило 172 [13]. Среди всех пациентов с КМ ЦНС дети составляют около 25% (28) и одной из самых характерных особенностей клинических проявлений КМ у них является высокая частота внутримозговых кровоизлияний [9,17,19,20,44]. Семейные случаи КМ ЦНС, по данным литературы [35,48], составляют около 20% всех наблюдений. Их возникновение связывают с генетическим дефектом — аутомсомной доминантой или новыми мутациями [35]. Генетические мутации обнаружены в 7q хромосоме у американцев испанского происхождения [23], но не подтвержденные в других наблюдениях [18,22,24]. Характерными особенностями семейных КМ являются по сравнению со спорадическими случаями более высокая частота множественных КМ, более частое субтенториальное расположение и младший возраст пациентов [48]. Интересен также факт развития КМ у детей после курсов лучевой терапии [8,11], при этом суммарная доза облучения у детей не превышала 30 Гр [26]. По данным наших наблюдений, случаев семейных КМ ЦНС мы не выявили, хотя с полной достоверностью об этом утверждать не возможно, так как не всем родителям и родственникам проведены КТ, МРТ.

Современное представление о патоморфологии КМ позволяет утверждать, что данная аномалия относится к гамартомам, не обладает митотической активностью и в противоположность гемангиомам, ангиомам не является онкологическим процессом [29,39,47]. КМ представлены патологически измененными, расширенными венозными сосудами, выстланными одним слоем эндотелиальных клеток. Мышеч-

ные и эластические волокна в них отсутствуют (рис. 1, 2 цветной вкладки). В противоположность капиллярным телеангиэктазиями, при КМ между расширенными венами отсутствует прослойка мозговой ткани, а сама КМ окружена астроцитарной тканью с выраженным глиозом, пропитана гемосидерином, с частым отложением кальция. У детей нередко обнаруживаются сопутствующие кисты, как результат резорбции старых кровоизлияний [25,29,50]. Ряд исследователей [5,10,16,37,39,49], обнаруживая при патоморфологических исследованиях рядом с КМ участки измененных сосудов (дизморфизм) или даже небольшие капиллярные телеангиэктазии, высказывают мнение об их едином происхождении. В то же время результаты прижизненных визуализирующих исследований, данные ангиографии и операционных находок не подтверждают эти предположения. Увеличение размеров КМ связывается с гемorragиями в мозговую паренхиму и развивающейся в этом месте атрофией ткани [29,40]. Именно атрофия мозговой ткани, глиоз, пропитывание тканей продуктами распада крови являются ведущими факторами развития эпилептических проявлений церебральных КМ.

Локализация КМ у детей несколько отличается от таковой у взрослых. Супратенториальное расположение КМ констатируется примерно у 80% взрослых пациентов [13,19,46]. У детей эта локализация наблюдается реже. По данным одних авторов [46], супратенториальное расположение КМ отмечается у 64,7% больных, по данным других [49] — у 66%. У детей лобная локализация составляет 25,4% всех наблюдений КМ, теменная и височная — 15% [13]. Преимущественное расположение супратенториальных КМ — корковая и подкорковая зоны. При глубинном расположении КМ можно обнаружить в подкорковых ганглиях, стволе мозга, пинеальной области, в пластинке черверохолмной цистерны, желудочках мозга, хиазме, черепных нервах). Характерно, что стволую локализацию КМ у детей наблюдают значительно чаще (14,7%), чем у взрослых [19]. Супратенториальное расположение КМ мы отмечали у 31 (91,2%) ребенка, субтенториальное — у 3 (8,8%), подкорковое — у 9 (26,5%), стволую — у 2 (5,9%) детей.

Размеры КМ ЦНС, приведенные в литературе [44], колеблются от 0,1 до 10 см. У детей они составляют в среднем 6,7 см, у взрослых — 2–3 см. Возможно, этим объясняется более высокая частота гемorragий и кистообразований у детей. У наблюдаемых нами детей размеры КМ колебались от 0,6 до 8 см, составляя в среднем 5,2 см. Относительно частоты кровоизлияний при КМ следует отметить, что гемorragия как первый симптом заболевания отмечается

примерно у 30% детей (риск гемorragии у них выше). Частота внутримозговых кровоизлияний у детей составляет от 36 до 78% всех случаев клинически проявившихся КМ головного мозга [19,31,45–47], в то время как у взрослых — 8–37% [44]. Это связывают с большими размерами КМ у детей, с более частой субтенториальной локализацией, при которой ежегодный риск гемorragии равен 17,5%, а с супратенториальной — 3,7% [15]. По данным некоторых авторов [49], из 36 детей у 19 (45%) клинические проявления были по гемorragическому типу, у 11 (32%) — по эпилептическому типу, у 3 (11,5%) — по ишемическому типу и у 3 отмечали бессимптомное течение КМ (случайные находки при обследовании в связи с ЧМТ). Острое начало заболевания с подтвержденным внутримозговым кровоизлиянием мы наблюдали у 19 (55,9%) детей. Эпилептиформное начало заболевания констатировали у 15 (44,1%) детей, но при обследовании всегда обнаруживали признаки гемorragии, хотя и менее выраженные, чем при апоплексической форме. Бессимптомное течение КМ мы не наблюдали. При субтенториальной локализации КМ массивные внутримозговые кровоизлияния были у 56,2% детей, при супратенториальной — у 66,7%.

КМ хорошо диагностируются при МРТ — исследовании, которое считается более информативным методом по сравнению с КТ [16]. Полноценное МРТ-исследование считается достаточным для диагноза КМ головного мозга [16,33], особенно когда морфологическая верификация поражения не возможна [14,48]. КМ не накапливают или незначительно накапливают контрастное вещество (рис.3). Однако не следует игнорировать данные КТ, которые при наличии гемorragического компонента дают

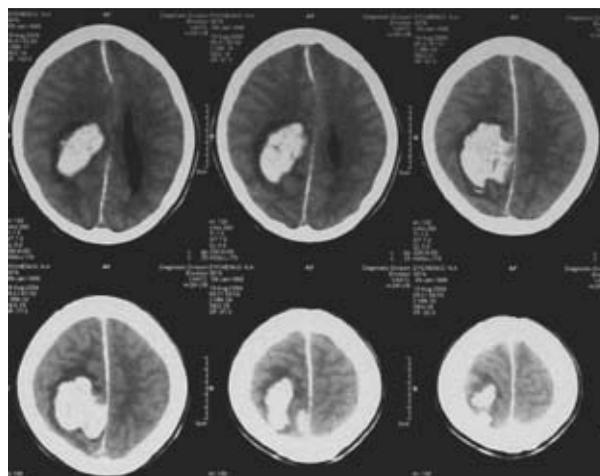


Рис.3. КТ головного мозга больного Д-о Н., 18 лет. Внутримозговая гематома правой области с незначительным перифокальным отеком мозгового вещества и смещением срединных структур

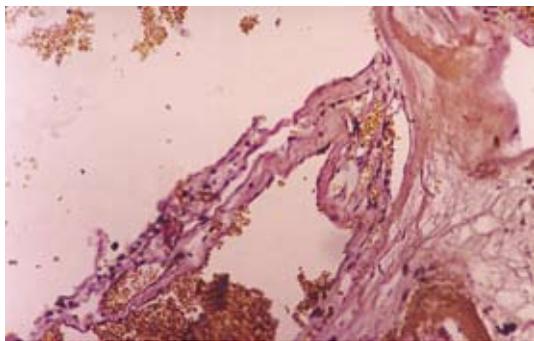


Рис.1. Кавернома. Образование, состоящее из синусоидного типа сосудов разного калибра. Их просветы выстланы одним слоем уплотненного эпителия. Сосудистые полости разделены соединительнотканной стромой с дистрофическими изменениями: участки фибриноидного набухания и дискомплексации коллагеновых волокон стромы, явлениями фокального глиоза и склероза. Значительное полнокровие отдельных сосудов в стадии организации, часть сосудов — запустевшие. Окраска гематоксилин-пикрофуксином. Ув. 125

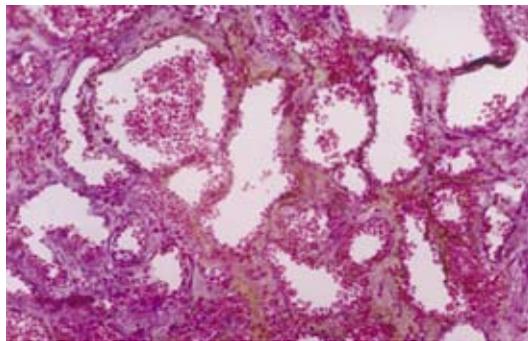


Рис.2. Кавернома. Сосуды синусоидного типа с явлениями полнокровия. Отложения гемосидерина в строме. Отек и дистрофические изменения стромальных перегородок (очаговый склероз). Окраска гематоксилин-эозином. Ув. 125

много информации о размерах, локализации КМ, сроках кровоизлияния, перифокальном отеке мозга (рис. 4). Нередко на фоне гематомы, особенно в стадии частичной резорбции, удается обнаружить участок, отличающийся по плотности, обусловленный самой КМ. Менее информативна КТ при стволовой и подкорковой локализации процесса. Всем наблюдаемым нами детям проведены КТ- и МРТ- исследования. При КТ-исследовании у всех детей выявляли гиперденсивные очаги поражения, у 33 — установили геморрагический компонент в структуре очага, но заподозрили КМ только у 12 (35,3%) пациентов. При МРТ-исследовании также у всех больных диагностировали очаги поражения с геморрагическим компонентом, но предположение о каверноме высказано только у 55,9% детей. У 26 пациентов требовалась дифференциальная диагностика с АВМ и у 3 — с кистозной внутримозговой опухолью и геморрагией. Считается, что внутримозговые гематомы при КМ характеризуются более округлой формой, разными сроками геморрагии, отсутствием значительного перифокального отека [38,39,43], что связано с меньшей скоростью кровотока и меньшим давлением в каверномах по сравнению с АВМ, отложением гемосидерина и уплотнением глии.

У детей младшего возраста определенную информацию при КМ, осложненных кровоизлиянием, может дать ультразвуковое сканирование мозга. Сообщение о таком опыте при КМ мы встретили только в одной публикации [49], хотя о возможностях сонографии в диагностике внутричерепных геморрагий у детей младшего возраста известно много [1,3]. У всех наблюдаемых нами детей внутримозговые кровоизлияния хорошо визуализировались как гиперэхогенные очаги, вызывающие дислокацию мозговых структур, но судить о генезе кровоизлияний было невозможно (рис.5). Допплерографическое исследование сосудов мозга не выявляло при этом изменений скорости мозгового кровотока, что могло служить косвенным признаком отсутствия артерио-венозного шунтирования.

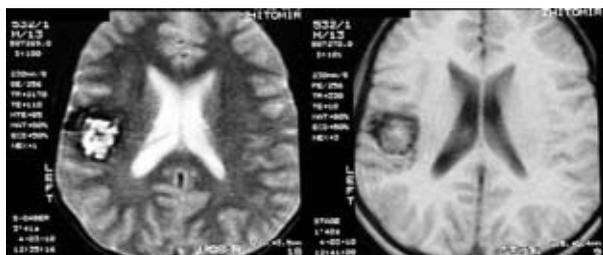


Рис.4. МР-томограмма головного мозга ребенка Х-й А., 7 лет. Кавернома левой височной доли без выраженного перифокального отека и дислокации мозговых структур

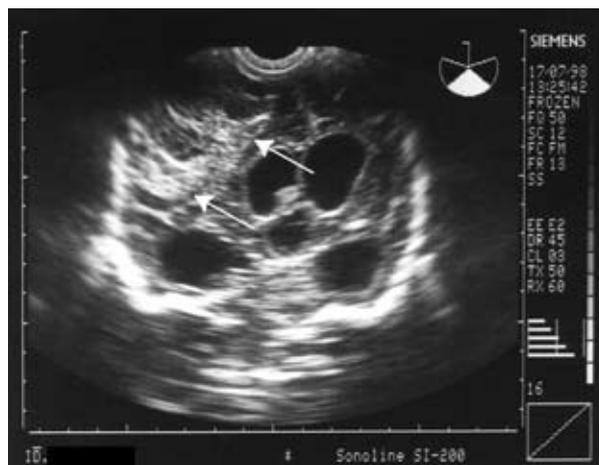


Рис. 5. НСГ ребенка Ш-к В., 9 мес. Внутримозговая гематома левой заднелобной области, дислокация тела левого бокового желудочка, умеренно выраженная гидроцефалия

Учитывая возникающие сомнения в генезе геморрагий, возможность наличия АВМ, 23 больным производили МРТ-ангиографию и 28 — селективную ангиографию. Кроме дислокации сосудов, обусловленной объемом внутримозговой гематомы, другой патологии выявить не удалось. Это же подтверждают другие авторы [6,49], которые считают ангиографию обязательным исследованием при КМ.

Лечебная тактика при КМ головного мозга строится с учетом множества факторов — возраста и пола пациента, локализации поражения, состояния больного, риска повторной геморрагии, эффективности противосудорожной терапии, выраженности неврологического дефицита, риска оперативного вмешательства и т.д. [12,15,17,29,32,36,44]. У взрослых доказана возможность длительного бессимптомного течения заболевания. У детей пока это подтверждается единичными сообщениями [49] и все публикации касаются в основном хирургического и радиохирургического лечения. Мы также не располагаем наблюдениями бессимптомного течения КМ у детей. Возможно, это связано с более высокой частотой геморрагий при КМ у детей, трудностью интерпретации жалоб ребенка, более редким проведением КТ, МРТ при эпилептических припадках.

Бессимптомное течение небольших размеров КМ, расположенных в полушариях большого мозга, позволяет ограничиться наблюдением за пациентом в течение длительного времени. Это обусловлено относительно более низким “геморрагическим потенциалом” таких КМ [15]. При субтенториальной, подкорково-стволовой локализации, сопровождающейся высоким “геморрагическим потенциалом”, хирургическое лечение бессимптомно протекающих

КМ носит часто профилактический характер и в каждом случае требует индивидуального подхода с учетом риска развития в послеоперационный период неврологического дефицита [49]. Близость КМ к мягкой мозговой оболочке или эпендимарному слою обосновывает их удаление, если сам хирургический подход не сопряжен со значительным повреждением мозговой ткани [32,49]. Именно такие КМ часто становятся объектом радиохирургического лечения. Данный метод достаточно опробован у взрослых, подтвердил свою эффективность в профилактике повторных геморрагий. Радиохирurgia снижает риск повторной геморрагии в первые два года после лечения с 22,4 до 4,5% [49]. Некоторые авторы [34] пишут даже о 1,1% повторных геморрагий для “кровооточащих” и 0,6% для “не кровооточащих” КМ. Вместе с тем, радиохирurgia КМ головного мозга не является безопасным методом и ее эффективность ниже, чем при АВМ. Сообщается о 20% летальности [49], о 26% выраженных осложнений [34], особенно при подкорковой локализации КМ. По данным литературы [41], летальность у детей с КМ составляет 11%, частота осложнений — 50%. У 2 детей (КМ подкорковых структур и моста) предполагалось применение радиохирургического метода лечения, но специалисты от его применения отказались

В противоположность бессимптомному течению КМ все случаи, сопровождающиеся нарастанием неврологического дефицита, сочетающиеся с острыми или подострыми гематомами, имеющими объемное воздействие, требуют хирургической помощи [47]. Только тяжесть состояния (глубокая кома, нарушения витальных функций) может служить основанием для временного отказа от операции. Принципиально методика удаления КМ головного мозга у детей и взрослых мало чем отличается. Минимальная кортикотомия, бережное отношение к сосудам, подход через функционально менее значимые зоны мозга являются общепризнанными. Для этого используют нейронавигацию, интраоперационное ультразвуковое сканирование, кортикографию или корковую стимуляцию, микрохирургическую технику, микроскоп, реже ультразвуковой аспиратор или лазер. Главной особенностью является более осторожное отношение к возможности операционной кровопотери, особенно у детей в возрасте до 5 лет [46,49]. Мы оперировали 12 детей с внутримозговыми гематомами, обусловленными КМ. Относительно небольшие размеры кровоизлияния, глубинная локализация, незначительная выраженность неврологического дефицита и ожидаемое его углубление после операции дали возможность остановить выбор в пользу консервативной тера-

пии у 22 детей. Наблюдение за этими детьми в течение 2—5 лет не выявило повторных геморрагий и нарастания неврологического дефицита. Среди оперированных пациентов у 11 КМ локализовались в полушариях большого мозга, у 1 — в мозжечке. Один пациент с КМ теменной доли умер в ранний послеоперационный период из-за развития эпидуральной гематомы, обнаруженной и удаленной на следующий день после основной операции. У 11 больных операция была радикальная и при контрольных исследованиях КМ не обнаружено. У 1 ребенка при кажущейся радикальности вмешательства через 1 год при контрольном МРТ-исследовании обнаружили небольшой участок измененного сигнала, по-видимому, обусловленный влиянием части неудаленной КМ. Каких-либо клинических проявлений при этом не отмечали.

Особого подхода к лечению требуют пациенты с epileptическими проявлениями заболевания. Отсутствие значительного геморрагического компонента (гематомы), масс-эффекта и медикаментозная эффективность коррекции приступов у 15 больных склонили в пользу консервативной терапии. Противосудорожная терапия полностью устранила приступы, а контрольные исследования в сроки до 2 лет не выявили увеличения КМ или рецидивов геморрагий. Характерно, что у 3 из этих больных КМ располагались в теменной и у 2 — в лобной области. При височной локализации процесс (5 пациентов) ни в одном случае не удалось полностью купировать приступы и 2 детей были оперированы.

При удалении КМ, сопровождающимся epileptическими приступами, существует два подхода к методике проведения операций. Одни исследователи настаивают на обязательном удалении прилежащей мозговой ткани, пропитанной гемосидерином, являющейся источником ирритации [15], другие считают такой подход необязательным, так как это увеличивает вазогенный отек, риск развития неврологического дефицита в послеоперационный период [17,49]. У детей отдается предпочтение второму подходу [10,12,15,17,28,41,46,49]. Мы оперировали 2 детей с КМ, проявившимися epileptическими приступами. КМ располагались в височной доле. Во всех случаях удалось добиться радикального удаления патологического очага и прилежащее измененное мозговое вещество не удаляли. У 1 ребенка после операции приступы отсутствуют, у другого — их частота значительно уменьшилась, но полностью приступы не исчезли, несмотря на активную противосудорожную терапию. У этого пациента длительность заболевания (epileptических приступов) превышала 2 года, приступы были генерализованными. Воз-

можно, эти факторы являются предпосылкой недостаточной эффективности хирургического лечения КМ с эпилептическими проявлениями и требуют более радикальных вмешательств с удалением подлежащих измененных тканей.

При оценке результатов хирургического лечения КМ у 8 (66,7%) из 12 детей их можно признать отличными (отсутствие неврологического дефицита, нормальное физическое и интеллектуальное развитие). Хорошие результаты (незначительный неврологический дефицит, отсутствие эпилептических приступов) получены у 2 (16,6%) пациентов. Неудовлетворительные результаты (значительный неврологический дефицит, уменьшение частоты приступов, задержка интеллектуального развития) констатировали у 1 (8,3%) больного. После операции умер один ребенок, что дало послеоперационную летальность 8,3%. Эти данные значительно не отличаются от результатов других исследователей. Так, Mottoresе С. и соавторы [49] получили отличные результаты у 37,5% детей, хорошие — у 56,3%, неудовлетворительные — у 6,3%.

Выводы. Анализ литературы и данные собственного материала позволяют утверждать, что КМ головного мозга у детей не являются крайне редкой патологией. Они занимают второе место по частоте после артерио-венозных мальформаций как причина внутримозговых не травматических кровоизлияний у детей. Достаточно высокая (по нашим данным 44,1%) частота эпилептиформного проявления КМ требует МРТ-исследования всех детей с эпилептическими приступами. Лечебная тактика при КМ головного мозга у детей определяется состоянием пациента, локализацией процесса, типом клинического течения, выраженностью геморрагии, степенью объемного воздействия и дислокационного синдрома. Результаты хирургического лечения КМ полушарий головного мозга можно признать удовлетворительными, тогда как КМ стволово-подкорковой локализации требуют дальнейшего изучения.

Список литературы

1. Ватолин К.В. Ультразвуковая диагностика заболеваний головного мозга у детей. — М.: Видар, 1995. — 120 с.
2. Зозуля Ю.А., Слынько Е.И. Спинальные сосудистые опухоли и мальформации. — К.: ООО УВПК ЭксОб, 2000. — 375 с.
3. Иова А.С., Гармашов Ю.А., Андриященко Н.В., Паутницкая Т.С. Ультрасонография в нейроредиадрии (новые возможности и перспективы): Ультрасонографический атлас. — СПб.: Петроградский и К., 1997. — 160 с.
4. Скороморец А.А., Тиссен Т.П., Панюшкин А.И., Скороморец Т.А. Сосудистые заболевания спинного мозга. — СПб.: Сотис, 1998. — 526 с.
5. Abe T., Singer R.J., Marks M.P. et al. Coexistence of occult vascular malformations and developmental venous anomalies in the central nervous system: MR evaluation //Amer. J. Neuroradiol. — 1998. — V.19. — P.51–57.
6. Abdulrauf S.I., Awad I.A. Comment about the article of Amin-Hanjani S et al. //Neurosurgery. — 1998. — V.42. — P.1227.
7. Awad I.A., Robinson J.R., Mohanty S., Estes M.L. Mixed vascular malformations of the brain: clinical and pathogenetic considerations //Neurosurgery. — 1993. — V.33. — P.179–188.
8. Ball W.S. Jr. (1997) Cerebrovascular disease. In: Ball W.S. Jr. (ed) Pediatric neuroradiology. — Lippincott-Raven, Philadelphia, 1997. — P.505–563.
9. Barrow D.L., Krisht A. Cavernous malformations and hemorrhage / Awad I.A., Barrow D.L. (eds) Cavernous malformations. — AANS Publications Committee, Park Ridge, 1993. — P.65–80.
10. Barrow D.L., Awad I.A. Conceptual overview and management strategies. / Awad I.A., Barrow D.L. (eds) Cavernous malformations. — AANS Publications Committee, Park Ridge, 1993. — P.205–213.
11. Brühl K., Humpl T., Gutjahr P. et al. Cerebral cavernomas and telangiectasias as secondary disease following acute lymphatic leukaemia and cranial irradiation //Neuroradiology. — 1995. — V.37. — Suppl. 1. — P.54.
12. Buckingham M.J., Crone K.R., Ball W.S., Berger T.S. Management of cerebral cavernous angiomas in children presenting with seizures //Child's Nerv. Syst. — 1989. — V.5. — P.347–349.
13. Cavalheiro S., Braga F.M. Cavernous hemangiomas / Choux M., Di Rocco C., Hockley A.D., Walker M.L. (eds) Pediatric neurosurgery. — Churchill Livingstone, London, 1999. — P.691–701.
14. Curling O.D., Kelly D.L., Elster A.D., Craven T.E. An analysis of the natural history of cavernous angiomas //J. Neurosurg. — 1991. — V.75. — P.702–708.
15. De Tribolet N., Kaech D., Perentes E. Cerebellar haematoma due to a cavernous angioma in a child //Acta Neurochir. (Wien). — 1982. — V.60. — P.37–43.
16. Dillon W.P. Cryptic vascular malformations: controversies in terminology, diagnosis, pathophysiology, and treatment //Amer. J. Neuroradiol. — 1997. — V.18. — P.1839–1846.
17. Di Rocco C., Ianneli A., Tamburrini G. Cavernomas of the central nervous system in children. A report of 22 cases //Acta Neurochir. (Wien). — 1996. — V.138. — P.1267–1274.
18. Dubovsky J., Zabramski J.M., Kurth J. et al. A gene responsible for cavernous malformations of the brain maps to chromosome 7q //Hum. Molec. Genet. — 1995. — V.4. — P.453–458.
19. Edwards M.S.B., Baumgartner J.E., Wilson C.B. Cavernous and other cryptic vascular

- malformations in the pediatric age group / Awad I.A., Barrow D.L. (eds) *Cavernous malformations*. — AANS Publications Committee, Park Ridge, 1993. — P.163–183, 185–186.
20. Fortuna A., Ferrante L., Mastronardi L. et al. Cerebral cavernous angioma in children // *Childs. Nerv. Syst.* — 1989. — V.5. — P.201–207.
 21. Gangemi M., Longatti P., Maiuri F. et al. Cerebral cavernous angiomas in the first year of life // *Neurosurgery.* — 1989. — V. 25. — P.465–469.
 22. Gil-Nagel A., Dubovsky J., Wilcox K.J. et al. Familial cerebral cavernous angioma: a gene localized to a 15-cM interval on chromosome 7q // *Ann. Neurol.* — 1996. — V.39. — P.807–810.
 23. Gunel M., Awad I.A., Finberg K. et al. A founder mutation as a cause of cerebral cavernous malformation in Hispanic Americans // *New Engl. J. Med.* — 1996. — V.334. — P.946–951.
 24. Gunel M., Awad I.A., Finberg K. et al. Genetic heterogeneity of inherited cerebral cavernous malformation // *Neurosurgery.* — 1996. — V.38. — P.1265–1271.
 25. Hatashita S., Miyajima M., Kogan N. Cystic cavernous angioma. Case report // *Neurol. Med. Chir.* — 1991. — V.31. — P.414–416.
 26. Heckl S., Aschoff A., Kunze S. Radiation-induced cavernous hemangiomas of the brain: a late effect predominantly in children // *Cancer.* — 2002. — V.94. — P.3285–3291.
 27. Hermier M., Ongolo-Zogo P., Levrel J.M. et al. Spontaneous cerebral hematomas in children complicating unsuspected vascular malformations: value of the morphological analysis in the differential diagnosis between cerebral cavernoma (CM) and arteriovenous malformation (AVM) 35th Annual Congress of the European Society for Pediatric Radiology. — Rhodes, Greece, 1998 — P.78.
 28. Herter T., Brandt M., Szewart U. Cavernous hemangiomas in children // *Childs. Nerv. Syst.* — 1988. — V.4. — P.123–127.
 29. Hotteville J.P. The surgery of cavernomas, both supratentorial and infratentorial // *Adv. Techn. Stand. Neurosurg.* — 1995. — V.22. — P.185–259.
 30. Hsu F.P.K., Rigamonti D., Huhn S.L. Epidemiology of cavernous malformations / Awad I.A., Barrow D.L. (eds) *Cavernous malformations*. — AANS Publications Committee, Park Ridge, 1993. — P.13–23.
 31. Hubert P., Choux M., Houtteville J.P. Cavernomes cĳrĳbraux de l'enfant et du nourrisson // *Neurochirurgie.* — 1989. — V.35. — P.104–105.
 32. Huhn S.L., Rigamonti D., Hsu F. Indications for surgical intervention. In: Awad IA, Barrow DL (eds) *Cavernous malformations*. — AANS Publications Committee, Park Ridge, 1993. — P. 87–99.
 33. Kim D.S., Park Y.G., Choi J.U. et al. An analysis of the natural history of cavernous malformations // *Surg. Neurol.* — 1997. — V.48. — P.9–18.
 34. Kondziolka D., Lunsford L.D., Kestle J.R. The natural history of cerebral cavernous malformations // *J. Neurosurg.* — 1995. — V.83. — P. 820–824.
 35. Labauge P., Laberge S., Brunereau L. et al. Hereditary cerebral cavernous angiomas: clinical and genetic features in 57 french families // *Lancet.* — 1998. — V.352. — P.1892–1897.
 36. Lapras C.I., Lapras Ch., Deruty R. et al. Traitement chirurgical des cavernomes intracĳrĳbraux // *Neurochirurgie.* — 1989. — V.35. — P.120–125.
 37. Latchaw R.E., Truwit C.L., Heros R.C. Venous angioma, cavernous angioma, and hemorrhage // *Amer. J. Neuroradiol.* — 1994. — V.15. — P.1255–1257.
 38. Leblanc R., Little J.R. Hemodynamics of arteriovenous malformations // *Clin. Neurosurg.* — 1989. — V.36. — P.299–317.
 39. Lechevalier B. Etude neuropathologique des cavernomes // *Neurochirurgie.* — 1989. — V.35. — P.78–81.
 40. Le Doux M.S., Aronin P.A., Odrezin G.T. Surgically treated cavernous angiomas of the brainstem: report of two cases and review of the literature // *Surg. Neurol.* — 1991. — V.35. — P.395–399.
 41. Lena G., Paz Paredes A., Choux M. Brain stem cavernomas in children. Nine case reports and literature review // *J. Neurochirurgie.* — 2002. — V.48. — P.319–325.
 42. Lieberman M.W., Lebovitz R.M. Neoplasia in Kissane J.M. (ed.): *Anderson's Pathology.* — St. Louis, CV Mosby Company, 1990. — V.9. — P.570–575.
 43. Little J.R., Awad I.A., Jones S.C., Ebrahim Z.Y. Vascular pressures and cortical blood flow in cavernous malformation of the brain // *J. Neurosurg.* — 1990. — V.73. — P.555–559.
 44. Maraire J.N., Awad I.A. (1995) Intracranial cavernous malformations: lesion behavior and management strategies // *Neurosurgery.* — 1995. — V.37. — P.591–605.
 45. Mazza C., Scienza R., Dalla Bernardin B. et al. Malformations caveuneuses cĳrĳbrales (cavernomes) de l'enfant // *Neurochirurgie.* — 1989. — V.35. — P.106–108.
 46. Mazza C., Scienza R., Beltramello A., Da Pian R. Cerebral cavernous malformations (cavernomas) in the pediatric age group // *Childs. Nerv. Syst.* — 1991. — V.7. — P.139–146.
 47. Morales G., Escalonilla G., Galan L. et al. Cerebral cavernomas in childhood, clinical presentation and diagnosis // *Rev. Neurol.* — 2002. — V.34. — P.339–342.
 48. Moriarty J.L., Wetzel M., Clatterbuck R.E. et al. The natural history of cavernous malformations: a prospective study of 68 patients // *Neurosurgery.* — 1999. — V.44. — P.1166–1173.
 49. Mottolese C., Hermier M., Stan H. et al. Central nervous system cavernomas in the pediatric age group // *Neurosurg. Rev.* — 2001. — V.24. — P.55–71.
 50. Nakasu S., Yoshida M., Nakajima M., Handa J. (1991) Cystic cavernous angioma in an infant: CT features // *J. Comput. Assist. Tomogr.* — 1991. — V.15. — P.163–165.

Кавернозні мальформації головного мозку в дітей (огляд літератури та аналіз особистих спостережень)**Орлов Ю.О., Орлов М.Ю.**

Представлено огляд літератури та аналіз 34 особистих спостережень авторів кавернозних мальформацій головного мозку в дітей. Розглянуто варіанти клінічних проявів захворювання, сучасні методи діагностики і лікувальної тактики, обумовлені станом пацієнта, локалізацією процесу, типом клінічного перебігу, вираженістю геморагії, ступенем об'ємного впливу та дислокаційного синдрому. Результати хірургічного лікування кавернозних мальформацій, локалізованих у півкулях великого мозку, можна визнати задовільними, тоді як стовбурово-підкіркова локалізація потребує подальшого вивчення.

Cavernous malformations of the brain in children (literature review and report of personal cases)**Orlov Yu.A., Orlov M.Yu.**

The article represents review of literature and analysis of 34 personal cases of cerebral cavernomas malformation in children. Paper discusses the variants of clinical presentation, modern methods of diagnostic and treatment, based on the patient's condition, lesion localization, on the severity of hemorrhage, mass effect and dislocation syndrome. The results of surgical treatment of "hemispheric" cavernomas can be admitted as good, meanwhile the cavernomas of brain stem and subcortical localisation need further elaboration.

Комментарий

к статье Орлова Ю.А., Орлова М.Ю. "Кавернозные мальформации головного мозга у детей (обзор литературы и анализ собственных наблюдений)"

Статья имеет значительный научный и практический интерес, поскольку в ней рассматриваются вопросы клинических проявлений, диагностики и тактики лечения, причем не только хирургического, достаточно сложной и до настоящего времени такой редкой сосудистой патологии, как кавернозная мальформация. Подчеркиваются особенности клиники и лечения данной патологии у детей. Проведен анализ мировой литературы по этому вопросу. Интересными являются патоморфологический и генетический аспекты.

Авторы приводят собственные результаты лечения кавернозных мальформаций. Несмотря на сложность проблемы, им удалось добиться положительных результатов в лечении, не уступающих таковым зарубежных авторов.

Статья будет интересна как для сосудистых и детских нейрохирургов, так и для невропатологов.

*Е.И.Слынько, доктор мед. наук,
заведующий отделением спинальной патологии №1
Института нейрохирургии им.акад.А.П.Ромоданова АМН Украины*