

Primary multiple cerebral hydatid cysts: A case report of unusual presentation

Mohammadi AR^{1*}, Dalvandi M¹, Sarmadian H², Khalili M³

1- Department of Neurosurgery, Arak University of Medical Sciences, Arak, Iran

2- Department of Infectious disease, Arak University of Medical Sciences, Arak, Iran

3- Department of Anesthesiology, Arak University of Medical Sciences, Arak, Iran

Received:30 Apr.2013, Accepted: 29 May.2013

Abstract

Background: Hydatid disease is a common infection caused by *Echinococcus granulosus*. Cerebral involvement is very rare and only occurs in 2% of all hydatidosis in endemic areas. This study reports a case of primary multiple cerebral hydatid cysts in a 23-year- old patient.

Case: A 23-year-old female was admitted to the emergency ward with primary generalized tonic clonic seizure, left body and face hemiparesis, and history of headache in last two months. Contrast enhanced CT and MRI showed a big well-defined, rounded, cystic lesion in the motor strip of right temporo-parietal region with mass effect causing midline shift which was diagnostic for brain hydatid cyst and several smaller cysts. There was no evidence of other organs involvement. The patient underwent brain surgery and a big hydatid cyst (10cm in diameter) and some others adhering to brain parenchyma in different sizes were evacuated completely without rupture using Dowling method. The patient received albendazole 400mg/two times a day for 2 months. There was no cyst in patient's MRI study in the two-year follow up.

Conclusion: Though of low incidence, primary multiple cerebral hydatid cysts should be considered in endemic area using brain CT and MRI. Surgery is considered the standard treatment of the disease.

Keywords: Central nervous system parasitic infections, cerebral hydatid cyst, multiple cysts, seizures, surgery

*Corresponding author.

Address: Department of Neurosurgery, Arak University of Medical Sciences, Arak, Iran
Email: dr.mohamadi@arakmu.ac.ir

کیست هیداتید مغزی متعدد اولیه: معرفی یک مورد با تظاهر غیر معمول

علیرضا محمدی^{1*}، محسن دالوندی¹، حسین سرمدیان²، محمد خلیلی³

1. استادیار، گروه جراحی اعصاب، دانشگاه علوم پزشکی اراک، اراک، ایران

2. استادیار، گروه عفونی، دانشگاه علوم پزشکی اراک، اراک، ایران

3. استادیار، گروه بی‌هوشی، دانشگاه علوم پزشکی اراک، اراک، ایران

تاریخ دریافت: 92/2/10 تاریخ پذیرش: 92/3/8

چکیده

زمینه و هدف: کیست هیداتید یک بیماری عفونی رایج ناشی از انگل اکینو کوکوس گرانولوزوس می‌باشد. درگیری اولیه مغز بسیار نادر است به طوری که در نواحی اندمیک حدود 2 درصد است. در این مطالعه به معرفی یک بیمار 23 ساله مبتلا به کیست هیداتید اولیه متعدد مغزی می‌پردازیم.

مورد: بیمار خانم 23 ساله‌ای بود که با تشنج تونیک کلونیک ژنرالیزه برای اولین بار، همی پارزی نیمه چپ بدن و صورت و سابقه سر درد از دو ماه قبل به اورژانس مراجعه نمود. درسی تیاسکنو MRI مغز یک ضایعه سیستیک بزرگ با حدود مشخص و هموژن در نوار حرکتی تمپوروپریتال راست با اثر فشاری و شیفت خط وسط مشهود بود که وجود کیست هیداتید مغزی را مطرح نمود؛ تعدادی کیست کوچک‌تر نیز وجود داشت. بررسی‌ها درگیری سایر نقاط بدن را نشان نداد. بیمار با آلبندازول (400 میلی‌گرم دو بار در روز، 2 ماه) و جراحی برداشت تومور به روش دو لینگ درمان شد. تعدادی کیست هیداتید متصل به پارانیشیم مغز در سایزهای مختلف و یک کیست 10 سانتی‌متری به صورت کامل و بدون پارگی خارج شد. در پیگیری دو سال بعد در MRI بیمار هیچ ضایعه کیستیکی وجود نداشت.

نتیجه‌گیری: علیرغم میزان پایین بروز کیست هیداتید متعدد اولیه مغزی، در نواحی اندمیک بایستی تشخیص کیست هیداتید با استفاده از سی تی اسکن و MRI مد نظر قرار گیرد. جراحی روش استاندارد درمان بیماری است. **واژگان کلیدی:** عفونت‌های انگلی سیستم اعصاب مرکزی، کیست هیداتید مغزی، کیست‌های متعدد، تشنج، جراحی.

* نویسنده مسئول: اراک، میدان ولی عصر (عج)، بیمارستان ولی عصر (عج)، دپارتمان جراحی اعصاب

Email: dr.mohamadi@arakmu.ac.ir

مقدمه

کیست هیداتید یک بیماری عفونی ناشی از لار و انگل اکینوкокوس گرانولوزوس بوده و در کشورهای در حال توسعه شایع می‌باشد (1، 2). کرم بالغ اکینوкокوس در روده حیوانات گوشت‌خوار هم چون سگ و گرگ زندگی کرده و تخم‌های دفع شده از طریق مدفوع توسط حیوانات گیاه‌خوار و گاه انسان بلعیده می‌شود. تخم‌های بلعیده شده از طریق جریان خون سیستمیک و یا پورت به ارگان‌های مختلف منتشر شده و سبب درگیری اندام‌هایی چون کبد (65 درصد) و ریه (20 درصد) می‌شود (3، 4). درگیری سیستم اسکلتی، جمجمه و ستون فقرات کمتر شایع است و درگیری اولیه مغز بسیار نادر است به طوری که در نواحی اندمیک حدود 2-0/2 درصد کل موارد را شامل می‌شود. درگیری اولیه مغز می‌تواند ناشی از انتشار خونی لارو باشد (4). حدود 50-75 درصد کیست‌های مغزی در کودکان دیده می‌شود. بروز بالای بیماری در اطفال احتمالا به باز بودن مجرای شریانی مرتبط است و ممکن است هر منطقه از مغز را درگیر نماید ولی انتشار از شریان مغزی میانی شایع‌تر می‌باشد. در این مطالعه ما به معرفی یک بیمار 23 ساله مبتلا به کیست هیداتید اولیه متعدد در مغز می‌پردازیم.

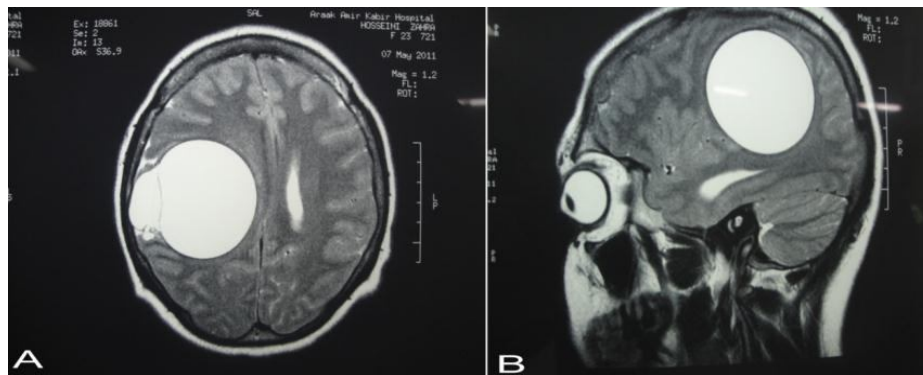
مورد

بیمار خانم 23 ساله‌ای بود که با تشنج تونیک کلونیک ژنرالیزه و همی پارزی چپ به اورژانس بیمارستان ولی عصر (عج) اراک مراجعه نمود. بیمار سابقه قبلی تشنج نداشت و بروز سر درد از دو ماه قبل را ذکر می‌نمود. در

معاینات بالینی بیمار هوشیار و علائم حیاتی وی طبیعی و پایدار بود و تب نداشت. در سوابق بیمار مصرف سبزی کوهی آلوده وجود داشت. همچنین در معاینه عصبی همی پارزی نیمه چپ بدن در حد 3/5 در اندام تحتانی و 2-3/5 در اندام فوقانی مشاهده شد. همی پارزی نیمه چپ صورت نیز وجود داشت. معاینه اعصاب کرانیال طبیعی بود.

در سی تی اسکن اولیه مغز یک ضایعه سیستمیک هیپودنس بزرگ با حدود مشخص و هموژن در ناحیه تمپوروپرییتال راست، در مسیر نوار حرکتی بیمار (motor strip) با اثر فشاری و شیفت خط وسط، اکستراآگزینال و بدون آدم و ازوژنیک واضح مشهود بود. برای بیمار فنی توئیتزریقی (یک گرم دوز اولیه و 100 میلی‌گرم هر 8 ساعت)، آمپول دگزامتازون (8 میلی‌گرم دوز اولیه و 8 میلی‌گرم هر 8 ساعت) و آمپول رانتیدین (50 میلی‌گرم دوز اولیه و 50 میلی‌گرم هر 8 ساعت) شروع شد. معاینات روز بعد از بستری بهبود توان اندام‌ها در حد 4/5 را نشان داد و تشنج بیمار تکرار نشد.

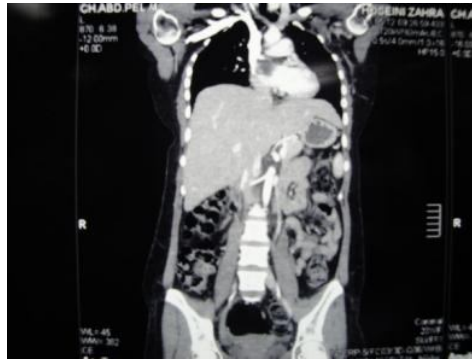
در MRI با و بدون تزریق ماده حاجب، ضایعه با حدود مشخص هیپوسینگنال در T1 و هیپرسیگنال در T2 بدون جذب ماده حاجب مشهود بود (شکل 1) که وجود کیست هیداتید مغزی را قویا مطرح می‌نمود. سطح آنتی‌بادی هیداتید (HydatidAb) تا رقت بیش از 1/16 نیز مثبت بود. در بررسی‌های تصویربرداری قفسه سینه، شکم و لگن بیمار هیچ‌گونه ضایعه مشکوک به کیست هیداتید یافت نشد که مطرح‌کننده کیست هیداتید متعدد اولیه مغزی بود (شکل 2).



شکل 1. نمای کیست هیداتید لوب تمپوروپرییتال راست در برش آگزینال (A)، برش سائزیتال (B)

صورت کامل از ناحیه تمپوروپرییتال راست خارج شد. تعداد زیادی کیست هیداتید کوچکتر متصل به پارانشیم مغز نیز وجود داشت که به صورت کامل و بدون پارگی خارج شد

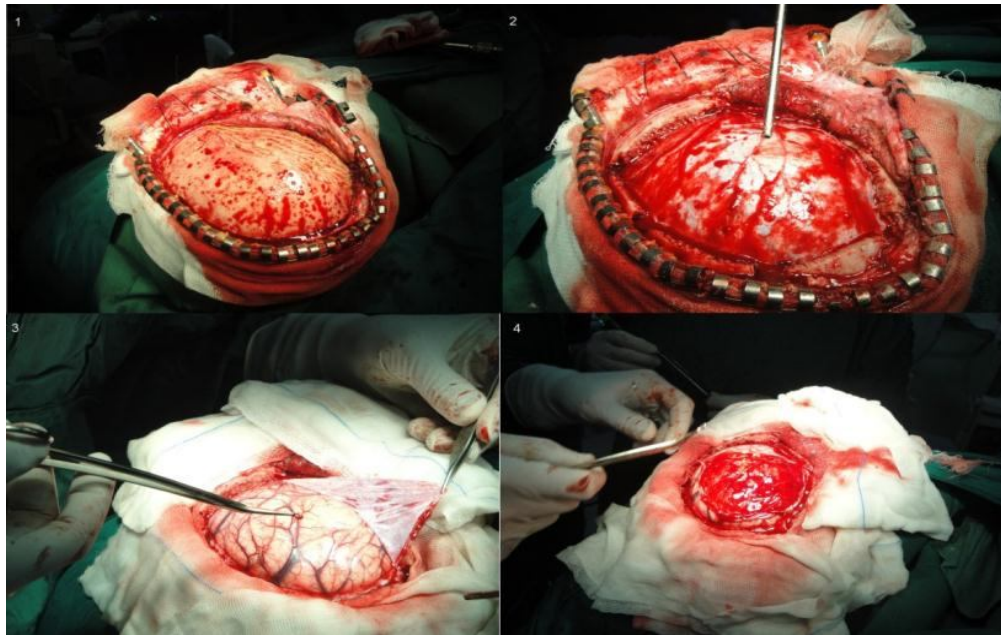
به دنبال تشخیص بیمار با آلبندازول (400 میلی گرم دو بار در روز) به مدت 6 هفته تحت درمان قرار گرفته و هم زمان جراحی رزکشن تومور انجام شد. در جراحی به روش دولینگ (Dowling) کیست بزرگی بدون پارگی و به



شکل 2. نمای کرونال قفسه سینه، شکم و لگن در MRI؛ عدم وجود کیست هیداتید

آتروفیک نباید کمتر از $3/4$ سایز کیست باشد. با پایین آوردن سر بیمار یعنی با استفاده از نیروی گرانش و تزریق نرمال سالین گرم از طریق فولی در ناحیه بین کیست و مغز پیرامون آن به خروج کیست کمک می شود (شکل 4) (5).

در روش جراحی دولینگ (Dowling)، تروما فلپ (Question mark flap) و کرانیوتومی بزرگ ایجاد شده و کورتکس نازک شده و لایه آراکنوئید روی کیست به آرامی کنار زده می شود (شکل 3). باز کردن کورتکس



شکل 3. مراحل جراحی کیست هیداتید



شکل 4. کیست هیداتید 10 سانتی متری و کیست‌های کوچک‌تر که کامل و بدون پارگی خارج شده‌اند

بررسی‌های تصویر برداری میسر است. وجود ضایعه کیستیک با جدار نازک، کاملاً منظم و صاف و بدون جزء جامد، با دانسیته نزدیک به مایع مغزی نخاعی یا کمی افزایش یافته در سی تی اسکن مغزی تشخیصی است. معمولاً ادم پیرامونی وجود نداشته ولی اثر فشاری دیده می‌شود. در MRI نیز نمای هیپودنس جدار کیست در نمای T2 تشخیصی است (4).

کیست هیداتید مغزی اغلب در کودکان و بالغین جوان دیده می‌شود (5، 8، 9). در بالغین علائم نورولوژیک فوکال با توجه به منطقه درگیری بروز می‌نماید. در اغلب مواقع انتشار بیماری از طریق شریان مغزی میانی است و در بیمار معرفی شده نوار حرکتی در ناحیه تمپوروپریتال راست درگیر بوده و تشنج تونیک کلونیک ژنرالیزه به عنوان اولین علامت بیماری سبب مراجعه بیمار به بیمارستان شده بود. بروز تشنج علامت شایعی نیست و موارد نادری با این تظاهر تاکنون معرفی شده‌اند (3).

دسای و همکارانش بیمار 26 ساله‌ای را معرفی نموده‌اند که با تب و کاهش سطح هوشیاری به اورژانس مراجعه نموده و بررسی سینه و شکم نرمال بوده است. در بررسی مغز با سی تی اسکن و MRI ضایعات کیستیک متعدد مغزی با ویژگی‌های کیست هیداتید مغزی وجود داشته است. بیمار تحت جراحی قرار گرفته و با خروج کیست‌های هیداتید و دارو بهبود یافته است (4). در مطالعه دیگری بیمار 20 ساله‌ای با سابقه 3 ماهه همی پارزی پیش‌رونده چپ و کاهش سطح هوشیاری به اورژانس

بیمار دو هفته بعد از بستری در بیمارستان با حال عمومی خوب و بدون هیچ‌گونه ضایعه و نقص عصبی ترخیص شد. با توجه به وجود ضایعه در منطقه حرکتی مغز و آستانه پایین تشنج در این ناحیه، جهت پیشگیری داروهای ضد تشنج ادامه یافت. بیمار به مدت 4 ماه فنی توئین خوراکی (100 میلی‌گرم هر 8 ساعت) و پس از آن تا دو سال سدیم والپروات (400 میلی‌گرم هر 12 ساعت) دریافت نمود. در پیگیری بیمار دو سال بعد از جراحی با استفاده از MRI هیچ ضایعه کیستیکی رویت نشد که نشان دهنده بهبودی کامل و عدم عود بیماری است. داروهای ضد تشنج نیز پس از دو سال و با توجه به بهبودی کامل بیمار کاهش داده شده و سپس قطع شد.

بحث

کیست هیداتید متعدد اولیه مغز یک بیماری نادر می‌باشد. در اغلب موارد کیست‌های متعدد مغزی به دنبال پارگی خود به خودی یا تروماتیزه کیست هیداتید سایر نواحی هم چون کبد، ریه و طحال بروز می‌کند (6) به طوری که حدود 80 درصد کیست‌های هیداتید مغزی ثانویه به درگیری کبد است (7). در بیمار معرفی شده در مطالعه حاضر بررسی‌های قفسه سینه، شکم و لگن هیچ‌گونه ضایعه کیستیک را نشان نداد.

علیرغم میزان پایین بروز کیست هیداتید متعدد اولیه مغزی، در نواحی اندمیک بایستی هر نوع ضایعه کیستیک مغزی را به دقت بررسی نموده و تشخیص کیست هیداتید را مد نظر داشت. تشخیص این بیماری با استفاده از

از کلیه پرسنل اتاق عمل نوروسرجری بیمارستان ولی عصر (عج) اراک تقدیر و تشکر می‌شود.

منابع

1. Bourée P. Hydatidosis: dynamics of transmission. *World journal of surgery*. 2001;25(1):4-9.
2. Gulalp B, Koseoglu Z, Toprak N, Satar S, Sebe A, Gokel Y, et al. Ruptured hydatid cyst following minimal trauma and few signs on presentation. *Neth J Med*. 2007;65(3):117-8.
3. Nowak D, Lücking M, Böhmer R, Schreiner R, Fuchs H, Flügel K. Isolated intracerebral cystic echinococcosis. Unusual presentation of a rare disease]. *Deutsche medizinische Wochenschrift* (1946). 2002;127(31-32):1638-40.
4. JIO
5. Izci Y, Tüzün Y, Seçer HI, Gönül E. Cerebral hydatid cysts: technique and pitfalls of surgical management. 2008;24(6): E15-6.
6. Razzaq AA, Hashim A. Multiple cerebral hydatid cysts: a surgical challenge. *Journal-Pakistan Medical Association*. 2000;50(1):35-6.
7. Abdel Razek AAK, Watcharakorn A, Castillo M. Parasitic diseases of the central nervous system. *Neuroimaging Clinics of North America*. 2011;21(4):815-41.
8. Ravalji M, Kumar S, Shah A, Vaghela D, Makwana G, Singh K. CT and MRI features of the typical and atypical intracranial hydatid cysts: report of five cases. *Indian Journal of Radiology and Imaging*. 2006;16(4):727-32.
9. Duishanbai S, Jiafu D, Guo H, Liu C, Liu B, Aishalong M, et al. Intracranial hydatid cyst in children: report of 30 cases. *Child's Nervous System*. 2010;26(6):821-7.
10. Altas M, Aras M, Serarslan Y, Davran R, Evirgen O, Yilmaz N. A medically treated multiple cerebral hydatid cyst disease. *Journal of neurosurgical sciences*. 2010;54(2):79-82.

مراجعه نموده و در معاینات بالینی قدرت اندام‌ها کاهش یافته و 3/5 بوده است. در سی تی اسکن مغزی کیست‌های متعدد در ناحیه پاریتوآکسیپیتال راست موجود بوده است که با تاثیر فشاری سبب شیفت خط وسط شده است. بیمار با آلبندازول تحت درمان قرار گرفته ولی سی تی اسکن یک ماه بعد عدم بهبود ضایعات را نشان داد. بیمار تحت جراحی به شیوه Dowling قرار گرفته و 25 کیست هیداتید از مغز بیمار خارج شد (6).

برخی مطالعات به درمان دارویی موفق کیست هیداتید مغزی بدون جراحی نیز اشاره نموده‌اند ولی درمان جراحی با هدف خارج کردن کیست‌ها به طور کامل و بدون پارگی روش استاندارد درمان کیست هیداتید مغزی است. تعداد این مطالعات اندک می‌باشد. در مطالعه نوواک یک بیمار 46 ساله با تشنج تونیک کلونیک ژنرالیزه و تشخیص کیست هیداتید اولیه مغزی معرفی شده است. در این مطالعه علیرغم بزرگی کیست و دسترسی جراحی به آن بیمار ابتدا با آلبندازول برای 2 ماه بدون جراحی تحت درمان قرار گرفته است که دارو موثر بوده و MRI بیمار عاری از کیست بوده است (3). در مطالعه دیگری یک بیمار 55 ساله مبتلا به کیست هیداتید مغزی متعدد معرفی شده است. این بیمار روزانه 10 میلی‌گرم به ازای هر کیلو وزن بدن آلبندازول دریافت نموده و بدون جراحی کاملاً بهبود یافته است (10).

در مطالعه حاضر نیز از روش جراحی Dowling استفاده شد. باز شدن ناگهانی کیست می‌تواند موجب بروز واکنش آنافیلاکسی و انتشار اسکولکس‌های عفونی در مایع مغزی نخاعی شود از اینرو دقت و توجه به سایز کیست و محل آن برای خروج کامل و بدون پارگی کیست بسیار مهم است. در بیمار معرفی شده در این مطالعه کیست در نوار حرکتی بیمار قرار داشت از این رو علاوه بر اهمیت رعایت نکات ایمنی برای پیشگیری از پاره شدن کیست، مراقبت از نوار حرکتی و عدم صدمه به آن نیز بسیار حائز اهمیت بود که خوشبختانه جراحی بیمار بدون هیچ عارضه عصبی انجام شد.

تشکر و قدردانی