

CAZURI CLINICE

CZU:616.432-006.55:616.8-005.1-092

<https://doi.org/10.52692/1857-0011.2021.3-71.48>**ADENOM HIPOFIZAR FUNCȚIONAL ASOCIAT CU ANEVRIISM NEERUPT DE ARTERĂ CEREBRALĂ MEDIE. STUDIU DE CAZ**¹Alexandru ANDRUȘCA,²Olga GAVRILIUC,²Pavel GAVRILIUC,²Paula FALA,¹Daniel PRISNEAC,¹Victor ANDRONACHI¹Institutul de Neurologie și Neurochirurgie "Diomid Gherman", Chișinău, Moldova²Universitatea de Medicină și Farmacie "Nicolae Testemițanu", Chișinău, Moldova**Rezumat.**

Asocierea dintre anevrism sacular cerebral și adenom hipofizar nu a fost încă bine elucidată, unii autori raportând o incidență de până la 7,4%. Cauza încă nu este pe deplin cunoscută. Aproximativ 97% dintre aceste anevrisme aparțin circulației cerebrale anterioare. Acest articol are ca scop descrierea a unui studiu de caz la care se determină un proces expansiv selar funcțional și anevrism intracerebral neerupt de arteră cerebrală medie. Pacienta de 57 de ani, se prezintă cu diagnostic de adenom hipofizar cu invazie în sinus cavernos și sindrom Cushing. La investigație prin RMN și AngioCT se determină incidental un anevrism asociat de arteră cerebrală medie pe dreapta, neeruptă. Pacientei i s-a efectuat intervenție micro-neurochirurgicală de ablație a formațiunii selare și cliparea concomitentă a anevrismului cerebral prin abord pterional clasic pe dreapta. După intervenție, s-a reușit o ablație parțială a adenomului intracavernos și clipare definitivă a anevrismului. Pacienta se externează din instituție după 5 zile, fără complicații suplimentare cu tratament ulterior adjuvant. Asocierea acestor două patologii este una extrem de rară. Literatura descrie rezolvarea acestor două patologii într-o singură intervenție, fără complicații esențiale post-operatorii, la fel descris și în cazul prezentat.

Cuvinte-cheie: adenom, anevrism cerebral, asociere, hipofizar.

Резюме

Связь между церебральной мешочковой аневризмой и аденомой гипофиза еще недостаточно изучена, при этом некоторые авторы сообщают о частоте до 7,4%. Причина пока полностью не известна. Около 97% этих аневризм относятся к переднему мозговому кровообращению. Данная статья призвана описать тематическое исследование, которое определяет функциональный избирательный процесс расширения и непрерывную внутримозговую аневризму средней мозговой артерии. У 57-летнего пациента диагностирована аденома гипофиза с инвазией кавернозного синуса и синдром Кушинга. При исследовании с помощью МРТ и AngioCT случайно определяется ассоциированная аневризма правой мозговой артерии справа, непрерывная. Пациенту была выполнена микро-нейрохирургия по удалению седловидного образования и сопутствующему клипированию аневризмы головного мозга классическим правым доступом. После операции удалось добиться частичного удаления интракавернозной аденомы и окончательного клипирования аневризмы. Пациент выписан из учреждения через 5 дней без дополнительных осложнений с последующим адьювантным лечением. Связь этих двух патологий встречается крайне редко. В литературе описано решение этих двух патологий за одно вмешательство без существенных послеоперационных осложнений, как описано в представленном случае.

Ключевые слова: аденома, церебральная аневризма, ассоциация, гипофиз.

Summary

The association between cerebral sacral aneurysm and pituitary adenoma has not yet been well elucidated, with some authors reporting an incidence of up to 7.4%. The cause is not yet fully known. 97% of these aneurysms belong to the anterior cerebral circulation. Description of a case study in which a functional selective expansive process and uninterrupted intracerebral aneurysm of the middle cerebral artery are determined. The 57-year-old patient is diagnosed with pituitary adenoma with cavernous sinus invasion and Cushing's syndrome. On investigation by MRI and AngioCT, an associated aneurysm of the right cerebral artery on the right, uninterrupted, is incidentally determined. The patient underwent micro-neurosurgery to ablate the saddle formation and the concomitant clipping of the cerebral aneurysm by a classical right approach. After the operation, a partial ablation of the intracavernous adenoma and a definitive clipping of

the aneurysm were achieved. The patient is discharged from the institution after 5 days, without additional complications with subsequent adjuvant treatment. The association of these two pathologies is extremely rare. The literature describes the solution of these two pathologies in a single intervention, without essential post-operative complications, as described in the case presented.

Keywords: adenoma, cerebral aneurysm, association, pituitary.

Introducere

Asocierea dintre anevrism cerebral și adenom hipofizar funcțional nu este încă bine stabilită. Această asociere este foarte rară și raportată de obicei cu morbidități înalte [1]. În literatură se raportează o incidență de până la 7,4% și relatează că procesele expansive selare se asociază mai des cu aneurisme cerebrale comparativ cu alte tumorile cerebrale [2]. Deși, aneurismele sunt mai frecvente în adenoame, ele sunt mai multe asociate ca producătoare de hormon de creștere [3]. Factorii ce duc la această asociere încă nu sunt pe deplin elucidați, mai ales pentru aneurismele distale. Unele studii retrospective prezintă o asociere de 5,4% în care 97% din aceste aneurisme sunt din circulația anterioară (carotidiană), iar 12% cazuri sunt aneurisme multiple peritumorale. Cea mai frecventă asociere a fost cu adenoame nefuncționale (8,8%), iar alte studii menționează că pacienții cu aneurisme și adenoame funcționale, au de obicei

acromegalie, după care cu prolactinomul (2,4%). S-a constatat, de asemenea, asocierea între aneurisme bilaterale ale carotidei interne și adenomul hipofizar [9]. Mecanismul probabil este legat de tulburări în microcirculația cerebrală și dezechilibru hormonal, infiltrația pereților vasculari [3,4]. La fel s-a demonstrat că disfuncțiile endocrine pot fi asociate cu formarea aneurismelor cerebrale [10], pe când alți autori au infirmat aceasta [3]. S-a observat o legătură strânsă între acromegalie și anevrism cerebral, dar există puține cazuri raportate în literatura de specialitate [5]. Tratamentul acestor patologii este unul complex. Unii autori preferă rezolvarea acestora în două etape pe când alții într-o etapă. De preferință este a doua, pentru a reduce maximal posibil complicațiile legate de intervenții, durata spitalizării, dar evident cu analiza minuțioasă a particularităților patologiei pacientului [6,7]. Accesul pterional clasic este unul din cel mai recomandat, care oferă cel mai bun rezultat post-

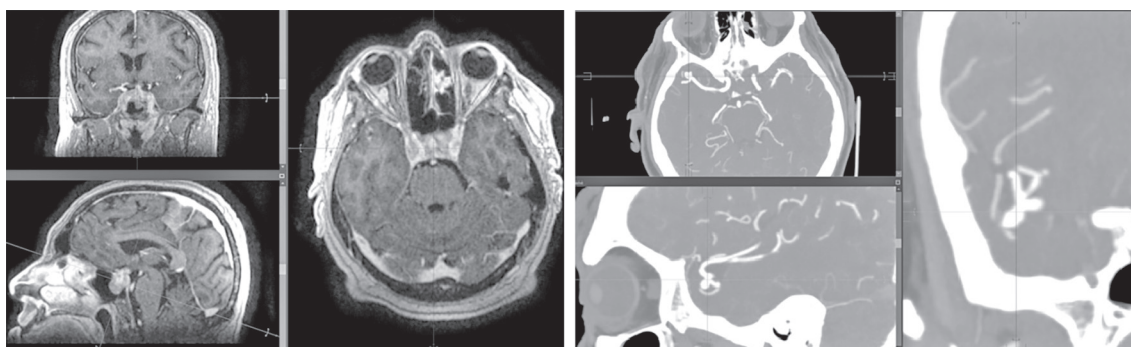


Figura 1. Adenom hipofizar cu invazie bilaterală în sinusul cavernos, predominant pe dreapta (stânga) și anevrism sacular de bifurcație de arteră cerebrală medie (dreapta)

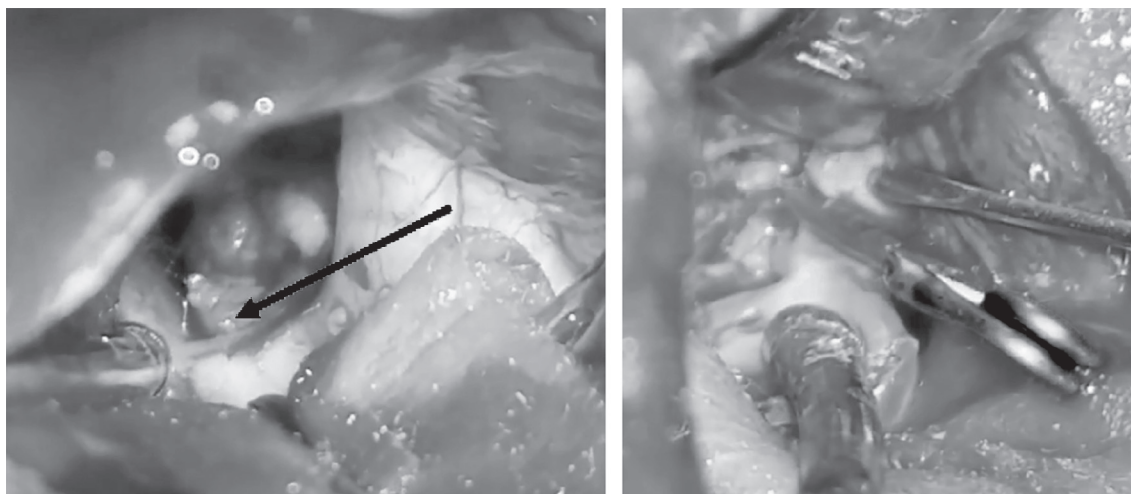


Figura 2. Imagine intraoperatorie cu tumoră selară (săgeată neagră, stânga) și anevrism sacular clipat definitiv cu vase emergente patente (dreapta)

perator [8] și permite de a "ataca" ambele patologii într-o singură etapă, mai ales dacă traiectoria aleasă intersectează amândouă patologii.

Scopul acestui articol este de a descrie un caz extrem de rar de asociere incidentală a anevrismului cerebral neerupt asimptomatic de bifurcație de arteră cerebrală medie (distală) cu adenom hipofizar activ și tratamentul neurochirurgical a acestora efectuat, de succes, într-o singură etapă.

Prezentare de caz

Pacientă de 57 de ani, se prezintă la consultație cu ptoză palpebrală completă pe dreapta, diplopie, hipostezie hemifacială dreaptă de 1 lună. La examen neuro-oftalmologic se confirmă oftalmoplegia dreaptă, neuropatie nerv oculomotor pe stânga, midriază cu reacție fotopupilară absentă pe dreapta, strabism paralytic, fără schimbări în perimetrie și acuitatea vizuală. S-a efectuat investigații paraclinice prin Rezonanță Magnetică Nucleară (RMN) cu contrast și Angiografie prin tomografie computerizată unde se determină proces expansiv selar gigant cu invazie în sinusul cavernos bilateral, predominant pe dreapta și un anevrism distal neerupt bifurcație a arterei cerebrale medii (ACM) pe dreapta (Fig.1).

Studiile hormonale dar și fenotipul pacientei demonstrează un sindrom acromegalic, complicat cu hipotiroidism. S-a luat decizia de a trata chirurgical ambele patologii într-o etapă prin abord pterional drept în 2 etape intraoperatorii. Clinoidectomie anterioara extradurală dreaptă, pentru decompresia canalului optic și fisurii orbitale superioare, ablația tumorii prin triunghiul anterior-medial (Dolenc). S-a efectuat rezecție parțială pe motiv de tumoră extrem de fibrozantă, aderentă la structurile neurovasculare și hemoragie din sinus cavernos. După care se efectuează cliparea intradurală a anevrismului de bifurcație de ACM pe dreapta prin deschiderea fisurii Sylviane (Fig. 2)

Postoperator fără complicații precoce și tardive. Neurologic se determină o regresie usoară a oftalmoplegiei drepte. Histologic se confirmă adenom hipofizar. A fost externată la o săptămână postoperator cu recomandarea tratamentului adjuvant și follow-up la 3 luni cu investigații imagistice și hormonale.

Discuții

Incidența asocierii adenomului hipofizar și a anevrismului cerebral încă nu a fost pe deplin stabilită. Se raportează de la puțin frecvente până la foarte frecvente [3]. Un lucru cert este că cel mai mult din procesele intracraniene, cel mai des anevrismul cerebral se asociază cu adenomul hipofizar [3-5]. Aceste anevrisme pot fi atât la distanță (distal) cât și în proximitatea (proximal) tumorii. Dintre adenoame,

adenoamele care secretă hormonul de creștere sunt cele mai frecvente. În acest studiu de caz, se prezintă o asociere între anevrism cerebral neerupt distal asimptomatic cu adenom hipofizar activ cu sindrom Cushing și hipotiroidism. Cauza acestei asocieri încă nu se cunoaște, fie că se datorează de efectul tumorii care induce modificări microcirculatorii, fie factori producția hormonilor de creștere care induce o creștere celulară aberantă.

Deși mai puțin frecvente, aceste leziuni pot apărea și în cazul apoplexiei hipofizare, care este asociată cu o rată mai mare morbiditate și mortalitate.

În cazul nostru, pacienta prezintă un oftalmoplegie cauzată de compresia mecanică a nervilor adiacenți din sinusul cavernos, invadată de tumoră, fără simptomatice cauzată de localizarea anevrismului sau efectului de masă a acestuia în fisura Sylviană.

Tratamentul neurochirurgical este destul de variat. Mai mulți autori propun tratamentul acestor două patologii în 2 etape: cliparea anevrismului cerebral după care ablația tumorii prin abord deschis sau endoscopic transnazal transsfenoidal, pe când alții preferă de a efectua aceste 2 intervenții într-o singură etapă. Nu s-a determinat careva diferențe în outcome-ul acestor două categorii de pacienți. Mai mult ține de experiența centrului neurochirurgical a abord aceste patologii, instrumentajul microchirurgical și mai puțin localizarea anevrismului cerebral față de procesul expansiv, controlul proximal și distal a anevrismului, configurația vasculaturii tumorii, extinderea acesteia și lateralizarea simptomatice pacientului.

Intervenția neurochirurgicală s-a soldat fără complicații și fără deficit adițional. Conform literaturii, complicații evidente apar în asocierea patologiei selare cu anevrisme erupt cu hemoragie subarahnoidiană, predominant cu anevrism proximal de tumoră.

Printre motivele invocate se numără efectul mecanic direct al adenomului hipofizar asupra vasculaturii [11], modificările circulatorii datorate implicării bazei craniului [12], infiltrarea directă de către tumoră [13] și producția de GH care duce la arterioscleroză (hormonală), hipertensiune și diabet [11].

Pentru a determina cauzele exacte a asocierii acestor două patologii se necesită mai multe studii retro- și prospective.

Contribuție: Finanțarea publicației din cadrul proiectului 20.80009.8007.39

Referințe

- Gokalp HZ, Avman N, Ozkal E, Gokben B. Brain tumour associated with intracranial arterial aneurysm. *Acta Neurochir (Wien)* 1980;53(3-4):267-273.
- Wakai S, Fukushima T, Furihata T, Sano K. Association of cerebral aneurysm with pituitary adenoma. *Surg Neurol* 1997;12(6):503-507.

3. Pant B, Arita K, Kurisu K, Tominaga A, Eguchi K, Uozumi T. Incidence of intracranial aneurysm associated with pituitary adenoma. *Neurosurg Rev* 1997;20(1):13-17.
4. Acqui M, Ferrante L, Fraioli B, Cosentino F, Fortuna A, Mastronardi L. Association between intracranial aneurysms and pituitary adenomas. *Neurosurgery* 1987;30(6):177-181.
5. Jaunsolo MA, Aguirre M, Bellido D, Castro S, Ruiz MP, Hawkins FG. Association of acromegaly and a cerebral arterial aneurysm disclosed by a subarachnoid hemorrhage. *Neurosurgery* 1986;32(3):266-268.
6. Revuelta R, Arriada-Mendicoa N, Ramírez-Alba J, Soto-Hernández JL. Simultaneous treatment of a pituitary adenoma and an internal carotid artery aneurysm through a supraorbital keyhole approach. *Minim Invasive Neurosurg* 2002;45(2):109-111.
7. Hermier M, Turjman F, Tournut P, et al. Intracranial aneurysm associated with pituitary adenoma shown by MR angiography: case report. *Neuroradiology* 1994;36(2):115-116.
8. Fujiwara S, Fujii K, Nishio S, Fukui M. Diagnosis and treatment of pituitary adenoma with adjacent carotid artery aneurysm. *J Neurosurg* 1991;35(1):41-46.
9. Weir B. Pituitary tumors and aneurysms: case report and review of the literature. *Neurosurgery* 1992;30(4):585-591.
10. Adachi K, Kudo M, Chen MN, Nakasawa S, Wakabayashi I. Cerebral aneurysm associated with multiple endocrine neoplasia, type 1: case-report. *Neurol Med Chi* 1993;33(5):309-311.
11. Jakueowski J, B kendall: Coincidental aneurysm with tumors of pituitary origin. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry* 41 (1978) 972-979
12. Du boulay GH: Some observations on the natural history of intracranial aneurysms. *Br J Radiology* 38 (1965) 721-57
13. Mangiardi jr, snalei~SEc, M. Lifshitz, R. PINTO: Coincidental pituitary adenoma and cerebral aneurysm with pathological findings. *Surg Neuro*119 (1983) 38-41