Kasuistika | Case report

Vzácná příčina akutní končetinové ischemie obou horních i dolních končetin způsobená prolongovaným vazospasmem

(A rare cause of acute limb ischemia of both upper and lower limbs caused by prolonged vasospasm)

Sylvie Kuchynková^a, Miroslav Chochola^a, Petr Vařejka^a, Dana Kautznerová^b, Pavel Procházka^a, David Ručka^a, Samuel Heller^a, Aleš Linhart^a, Jean-Claude Mukonkole Lubanda^a

^a II. interní klinika kardiologie a angiologie, 1. lékařská fakulta Univerzity Karlovy a Všeobecná fakultní nemocnice v Praze, Praha, Česká republika

^b Pracoviště radiodiagnostiky a intervenční radiologie, Institut klinické a experimentální medicíny, Praha, Česká republika

INFORMACE O ČLÁNKU

Historie článku:

Došel do redakce: 10. 12. 2016

Přijat: 8. 1. 2017

Dostupný online: 4. 2. 2017

Klíčová slova:

Akutní končetinová ischemie

Aterotrombóza

CT angiografie

Embolizace

Vazospasmus

Keywords:

Acute limb ischemia

Atherothrombosis

CT angiography

Embolization

Vasospasm

SOUHRN

Akutní končetinová ischemie je život ohrožující stav způsobený různorodými příčinami zahrnujícími trombózu nasedající na aterosklerotický plát a periferní embolizaci. U mladých jedinců je nicméně nutné zvažovat i jinou etiologii obtíží. Popisujeme vzácný případ 19letého muže s akutní končetinovou ischemií obou horních a dolních končetin zapříčiněnou prolongovaným vazospasmem.

© 2017, ČKS. Published by Elsevier sp. z o.o. All rights reserved.

ABSTRACT

Acute limb ischemia is a life-threatening condition caused by various etiologies including atherothrombosis and peripheral embolization. However, in young adults other etiologies should also be considered. We report a rare case of a 19-year-old man developing acute limb ischemia of both upper and lower limbs due to prolonged vasospasm.

Adresa: Doc. MUDr. Jean-Claude Mukonkole Lubanda, Ph.D., II. interní klinika kardiologie a angiologie, 1. lékařská fakulta Univerzity Karlovy a Všeobecná fakultní nemocnice v Praze, U Nemocnice 2, 128 08 Praha 2, e-mail: jean-claude.lubanda@vfn.cz

DOI: 10.1016/j.crvasa.2017.01.005

Úvod

Akutní končetinová ischemie (AKI) představuje závažný a život ohrožující stav způsobený různorodými příčinami zahrnujícími trombózu nasedající na aterosklerotický plát a periferní embolizaci. Trombóza *in situ* vzniká v nativním tepenném řečišti v místech s preexistující stenózou nebo v místě, kde byla v minulosti provedena endovaskulární nebo chirurgická intervence. K embolizacím do tepenného řečiště dochází nejčastěji z levostranných srdečních oddílů nebo z rozsáhlých aterosklerotických hmot z oblasti aorty. Mezi méně časté příčiny patří embolizace z tepenných aneurysmat (např. aneurysma abdominální aorty nebo arteria poplitea), paradoxní embolizace cestou foramen ovale patens či defektu septa síní nebo přímé postižení tepen v rámci Buergerovy choroby, vaskulitidy, traumatu tepny, její disekce, entrapment syndromu. Akutní končetinová ischemie vzniká jen raritně na podkladě vazospasmu.

Popis případu

V naší kasuistice popisujeme případ 19letého muže s anamnézou nikotinismu, abúzem kanabinoidů a dokumentovanou epizodou intoxikace metamfetaminem, který byl odeslán na naše pracoviště pro akutní končetinovou ischemii horních i dolních končetin. Pacient neměl jiná závažná přidružená onemocnění a kromě kouření u něho nebyly přítomny žádné jiné rizikové faktory aterosklerózy. Čtyři dny před přijetím nemocný pozoroval bolest a chlad v levé horní končetině. Domníval se, že si ruku přeležel. O několik hodin později začal stejné obtíže vnímat i na pravé horní končetině a obou dolních končetinách. Nemocný byl vyšetřen na jiném pracovišti a byla provedena CT angiografie s nálezem kónického zúžení obou brachiálních tepen s jejich distálním uzávěrem (obr. 1). Pacient byl následně odeslán do našeho centra k dovyšetření.

Při přijetí měl nemocný neměřitelný krevní tlak a nebyly hmatné pulsace ani na brachiálních, ani na femorálních tepnách. Tužkovým dopplerovským zařízením nebylo možné detekovat žádný signál periferních tepen horních ani dolních končetin. Všechny končetiny nemocného byly bledé a chladné s postižením motorických i senzorických funkcí. Nález na končetinách odpovídal stadiu IIB klasifikace Society for Vascular Surgery (SVS). Při laboratorním vyšetření byla zjištěna pouze mírné zvýšení hodnot kreatinkinázy (398 U/l), myoglobinu (116 µg/l) a D-dimerů (320 µg/l).

S ohledem na postižení perfuze všech čtyř končetin se mnohočetná embolizace jevila jako nepravděpodobná. Duplexní ultrazvukové vyšetření s provedením pulsního dopplerovského monitorování ukázalo zvýšenou pulsatilitu v axilárních a femorálních tepnách se zúžením v jejich distálních částech bez známek aterosklerotického postižení nebo trombózy (obr. 2 a 3).

V souladu s aktuálními doporučeními pro léčbu akutní končetinové ischemie byla zahájena léčba nefrakcionovaným heparinem [1]. S ohledem na přání nemocného a zlepšující se symptomatologii na konzervativní léčbě nebylo provedeno invazivní angiografické vyšetření. Pomocí jícnové echokardiografie byla vyloučena přítomnost intrakardiál-

Obr. 1 – CT angiografie brachiálních tepen. CT angiografie zobrazuje kónické zúžení brachiálních tepen s distální okluzí bez známek tepenného traumatu či disekce.

ní trombózy a interatriálního zkratového proudění. Nález na hrudní aortě byl bez pozoruhodností. Vyšetření na přítomnost dědičného trombofilního stavu včetně mutací faktoru V a II bylo negativní. Hodnoty proteinu C a S byly také normální. Vzhledem k tomu, že u nemocného byl během celé hospitalizace dokumentován sinusový rytmus a nebyla zjištěna intrakardiální trombóza, kardioemboli-zační etiologie se zdá být nepravděpodobná.

K vyloučení autoimunitního onemocnění byly provedeny odběry autoprotilátek (revmatoidní faktor, antifosfolipidové protilátky, ANCA, ANA, ENA, C3 a C4 složky komplexu) s negativním výsledkem. Na základě těchto výsledků a s ohledem na normální hodnoty zánětlivých parametrů zahrnujících C-reaktivní protein (2 mg/l) a sedimentaci erytrocytů (4 mm/h) byla diagnóza autoimunitního onemocnění velmi nepravděpodobná. Screeningové toxikologické vyšetření moči nepotvrdilo užití návykových látek, nicméně je nutno uvést, že moč byla odebrána s časovým odstupem několika dní od vzniku obtíží. Nemocný nebyl exponován

Obr. 2 – Pulsní dopplerovské zobrazení levé podklíčkové tepny. Duplexní sonografie s využitím pulsního dopplerovského zobrazení ukazující vyšší pulsilitu v levé podklíčkové tepně.

Obr. 3 – Barevné dopplerovské zobrazení levé stehenní tepny. Barevné dopplerovské zobrazení ukazující difuzní zúžení distální části levostranné stehenní tepny.

Obr. 4 – V průběhu terapie. Částečné zlepšení prokrvení levé ruky nemocného třetí den terapie alprostadilem. Pravá ruka je stále ischemická.

chladu či vibracím a negoval obtíže ve smyslu Raynaudova fenoménu. Pacient rovněž negoval užití vazoaktivních látek. Terapeutický pokus se sublingvální aplikací nitroglycerinu nicméně vedl k přechodnému zlepšení prokrvení horních a dolních končetin a zmírnění subjektivních obtíží. S přihlédnutím k faktu, že u nemocného nebyla zjištěna tromboembolická příčina, známky Buergerovy choroby, a s ohledem na negativní výsledky autoprotilátek byla stanovena diagnóza prolongovaného vazospasmu. Byla zvolena konzervativní léčba založená na kombinovaném podání intravenózního vazodilatancia (alprostadil) a nefrakcionovaného heparinu.

Během pěti dnů postupně došlo k vymizení obtíží nemocného a normalizaci fyzikálního nálezu (obr. 4). Nemocný byl propuštěn na perorální terapii blokátory kalciového kanálu. Zvažována u něho byla široká škála možných příčin vazospasmu. S ohledem na anamnézu abúzu kanabinoidů a amfetaminu se tedy vazospasmus spojený s užitím vazoaktivních látek jevil jako nejvíce pravděpodobný. Potvrdit tuto etiologii bohužel nebylo možné a příčina vazospasmu zůstává neznámá. V dalším sledování nemocný negoval obtíže končetinové ischemie a nepřál si další vyšetření či léčbu.

Diskuse

Vazospasmus vedoucí k akutní končetinové ischemii vzniká nejčastěji v souvislosti s užitím ergotaminu nebo jeho derivátů (např. diethylamid kyseliny lysergové, LSD). Ergotamin je přírodní alkaloid produkovaný houbou *Claviceps purpurea* (paličkovice nachová) a předávkování je spojeno s konvulzivním stavem nebo končetinovou ischemií, která může vést až ke gangréně [2–4]. Ergotamin je používán v terapii migrény a epizody vazospasmu bývají popisovány především u nemocných, kteří mají zároveň febrilie, sepsi, tyreotoxikózu anebo současně s ergotaminovými deriváty užíli i makrolidová či penicilinová antibiotika nebo antiretrovirotika [4–6].

Mezi další příčiny vazospasmu vedoucího k akutní končetinové ischemii patří užití kokainu [7] nebo substancí, kterými je naředěn (např. levamisol) [8], a karcinoidový syndrom [9]. V literatuře jsou popsány i případy bez jasné vyvolávající příčiny [10].

Stanovení diagnózy vazospasmu bývá svízelné a je založeno na vyloučení jiných příčin stenózy či uzávěru tepny. Typickým nálezem při provedení duplexní sonografie je průkaz zvýšené rychlosti toku a zúžení tepen [5,9].

Definitivní diagnózu vazospasmu však můžeme ve většině případů stanovit až na základě průkazu normalizace cévního průsvitu po vymizení vazokonstrikčního podnětu.

V terapii prolongovaného vazospasmu je nejdůležitější odstranění vyvolávající příčiny, je-li známa. Ve farmakoterapii se uplatňují tyto lékové skupiny: nitráty, blokátory kalciových kanálů, prostaglandiny, spasmolytika a antikoagula. Evidence pro užití této terapie je ovšem založena pouze na kasuistických sděleních [2–4].

Závěr

Vazospasmus je raritní příčinou protrahované končetinové ischemie a jeho vznik je uváděn v souvislosti s užitím

kokainu nebo jiných vazokonstrikčních substancí, mezi které patří zejména ergotamin a jeho deriváty. Naše kazuistika ukazuje složitost diferenciatně diagnostického uvažování u nemocných s neaterosklerotickými příčinami končetinové ischemie.

Prohlášení autorů o možném střetu zájmů

Bez střetu zájmů.

Financování

Žádné.

Prohlášení autorů o etických aspektech publikace

Autoři při přípravě této publikace postupovali v souladu s etickými standardy.

Informovaný souhlas

Od nemocného byl získán informovaný souhlas s publikací.

Literatura

- [1] L. Norgren, W. Hiatt, J. Dormandy, et al., Inter-society consensus for the management of peripheral arterial disease (TASC II), *Journal of Vascular Surgery* 45 (2007) S5–S67.
- [2] E. Zavaleta, B. Fernandez, M. Grove, M. Kaye, St. Anthony's fire (ergotamine induced leg ischemia): a case report and review of the literature, *Angiology* 52 (2001) 349–356.
- [3] S. Demir, S. Akin, F. Tercan, et al., Ergotamine-induced lower extremity arterial vasospasm presenting as acute limb ischemia, *Diagnostic and Interventional Radiology* 16 (2010) 165–167.
- [4] M.V. Raval, R.C. Gaba, K. Brown, et al., Percutaneous transluminal angioplasty in the treatment of extensive LSD-induced lower extremity vasospasm refractory to pharmacologic therapy, *Journal of Vascular and Interventional Radiology* 19 (2008) 1227–1230.
- [5] G. Adam, T. Kurt, C. Cinar, et al., Ergotamine-induced vasospastic ischemia mimicking arterial embolism: unusual case, *Ulusal Travma ve Acil Cerrahi Dergisi* 20 (2014) 291–294.
- [6] Z.K. Baldwin, C.C. Ceraldi, Ergotism associated with HIV antiviral protease inhibitor therapy, *Journal of Vascular Surgery* 37 (2003) 676–678.
- [7] S.S. Dhawan, B.W. Wang, Four-extremity gangrene associated with crack cocaine abuse, *Annals of Emergency Medicine* 49 (2007) 186–189.
- [8] C.M. McMullin, I. Bayat, E. Rytina, et al., Profound acute limb ischemia affecting all four limbs following cocaine inhalation, *Journal of Vascular Surgery* 61 (2015) 504–506.
- [9] C. Karadeniz, F. Köse, H. Abali, et al., Severe systemic vasoconstriction starting with acute limb ischemia leading to death in a patient with well-differentiated pulmonary neuroendocrine carcinoma: a new paraneoplastic syndrome?, *Acta Oncologica* 51 (2012) 124–127.
- [10] J. Kaneyama, O. Kawarada, S. Sakamoto, et al., Vasospastic limb ischemia presenting acute and chronic limb ischemia, *Annals of Vascular Diseases* 7 (2014) 169–172.

Z anglického originálu online verze článku přeložila autorka.