Синдром такоцубо у подростка со спинальной амиотрофией после хирургического лечения

К.П. Яблонская 1 , Д.Ю. Щекочихин 1,2 , С.А. Федоров 1 , С.А. Терехин 1 , С.Б. Шорников 1 , Е.С. Кешишан 1,3

¹АО «Ильинская больница», Московская область, Россия;

²ФГАОУ ВО «Первый Московский государственный медицинский университет им. И.М. Сеченова» Минздрава России (Сеченовский университет), Москва, Россия;

³ОСП «Научно-исследовательский клинический институт педиатрии имени академика Ю.Е. Вельтищева» ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова Минздрава России, Москва, Россия

Takotsubo syndrome in an adolescent with spinal amyotrophy after surgical treatment

K.P. Yablonskaya¹, D.Yu. Schekochikhin^{1,2}, S.A. Fedorov¹, S.A. Terekhin¹, S.B. Tshornikov¹, E.S. Keshishyan^{1,3}

¹Ilynskaya Hospital, Moscow region, Russia;

²Sechenov First Moscow State Medical University (Sechenov University), Moscow, Russia;

³Veltischev Research and Clinical Institute for Pediatrics of the Pirogov Russian National Research Medical University, Moscow, Russia

Синдром такоцубо (стресс-индуцированная кардиомиопатия), достаточно известный во взрослой кардиологической практике, может встречаться и у детей. Синдром такоцубо развивается после эмоционального или физического стресса: остро возникает обратимое нарушение сократимости левого желудочка в области верхушки. Развитие болевого синдрома, изменения на электрокардиограмме, повышение уровня тропонинов — все это имитирует инфаркт миокарда. Ключом к диагнозу служат интактные коронарные артерии и полная обратимость нарушений локальной сократимости со временем.

Представлено клиническое наблюдение развития синдрома такоцубо у подростка со спинальной мышечной атрофией III типа после планового оперативного вмешательства (повторный задний спондилодез). Развитие синдрома такоцубо с клиническими проявлениями острой левожелудочковой недостаточности и отеком легких произошло в раннем послеоперационном периоде с характерными изменениями на электрокардиограмме в виде элевации сегмента ST, локальным нарушением сократимости левого желудочка по данным эхокардиографии и вентрикулографии, повышением уровня тропонинов в крови. Своевременное обследование и коррекция терапии позволили подтвердить клинический диагноз. Регресс симптомов произошел в течение нескольких дней.

Ключевые слова: дети, синдром такоцубо, стресс-индуцированная кардиомиопатия, эхокардиография, вентрикулография.

Для цитирования: Яблонская К.П., Щекочихин Д.Ю., Федоров С.А., Терехин С.А., Шорников С.Б., Кешишян Е.С. Синдром такоцубо у подростка со спинальной амиотрофией после хирургического лечения. Рос вестн перинатол и педиатр 2021; 66:(3): 81–86. DOI: 10.21508/1027–4065–2021–66–3–81–86

Takotsubo syndrome (stress-induced cardiomyopathy) is well known in adult cardiology practice, and it also occurs in children. Takotsubo syndrome develops after emotional or physical stress. There is an acute transient disorder of the left ventricle contractility of the apex. The development of pain syndrome, electrocardiographic changes and troponins elevation imitate myocardial infarction. The key diagnostic point is intact coronary arteries and complete reversibility of local contractility disorders over the time.

The article describes the clinical case of takotsubo syndrome in an adolescent with type III spinal muscular atrophy after planned surgery (repeated posterior spondylodesis). Takotsubo syndrome with clinical manifestations of acute left ventricular failure and pulmonary edema developed in the early postoperative period with distinctive electrocardiographic changes (ST segment elevation, local impairment of left ventricular contractility according by echocardiography and ventriculography, and increased levels of troponin). Timely examination and correction of therapy confirm the clinical diagnosis. The regression of symptoms occurred within a few days.

Key words: children, takotsubo syndrome, stress-induced cardiomyopathy, echocardiography, ventriculography.

For citation: Yablonskaya K.P., Schekochikhin D.Yu., Fedorov S.A., Terekhin S.A., Tshornikov S.B., Keshishyan E.S. Takotsubo syndrome in an adolescent with spinal amyotrophy after surgical treatment. Ros Vestn Perinatol i Pediatr 2021; 66:(3): 81–86 (in Russ). DOI: 10.21508/1027-4065-2021-66-3-81-86

© Коллектив авторов, 2021

Адрес для корреспонденции: Яблонская Ксения Петровна — педиатр Ильинской больницы, ORCID: 0000-0003-0008-4219

e-mail: k.yablonskaya@ihospital.ru

Щекочихин Дмитрий Юрьевич — зам. гл. врача по терапии Ильинской больницы, доц. кафедры кардиологии, ультразвуковой и функциональной диагностики Первого Московского государственного медицинского университета им. И.М. Сеченова, ORCID: 0000-0002-8209-2791

119991 Москва, ул. Большая Пироговская, д. 2, стр. 4

Федоров Сергей Александрович — зав. отделением реанимации Ильинской больницы, ORCID: 0000-0001-8214-9826

Терехин Сергей Анатольевич — зав. отделением по рентгеноэндоваскулярной диагностике и лечению Ильинской больницы,

ORCID: 0000-0002-3854-2206

Шорников Сергей Борисович — врач-кардиолог Ильинской больницы, ORCID: 0000-0003-4896-6851

143421 Москва, ул. Рублевское предместье, д. 2, корп. 2

Кешишян Елена Соломоновна — д.м.н., проф., гл. педиатр Ильинской больницы, рук. Центра коррекции развития детей раннего возраста Научно-исследовательского клинического института педиатрии им. академика Ю.Е. Вельтищева, ORCID: 0000-0001-6268-7782

125412 Москва, ул. Талдомская, д. 2

Кнастоящему времени синдром такоцубо преимущественно описан у взрослых пациентов. В немногочисленных работах опубликованы случаи стресс-индуцированной кардиомиопатии в педиатрической практике [1].

В литературе можно встретить множество синонимов этого состояния: кардиомиопатия такоцубо, стрессовая кардиомиопатия, ампулоподобная кардиомиопатия, синдром разбитого сердца, синдром раздувания верхушки, синдром транзиторной дисфункции левого желудочка. «Takotsubo» в переводе с японского означает ловушка для осьминогов. Именно так выглядит при синдроме такоцубо левый желудочек в конце систолы: типичная форма с узким горлышком и шаровидной нижней частью (рис. 1). Впервые синдром был описан Н. Sato и соавт. [2] в 1990 г. в Японии. У детей и молодых людей синдром часто интерпретируется как миокардит или дилатационная кардиомиопатия, либо как «острая левожелудочковая недостаточность неизвестной этиологии». Распространенность синдрома такоцубо у взрослых составляет около 2% среди пациентов с подозрением на острый коронарный синдром [3].

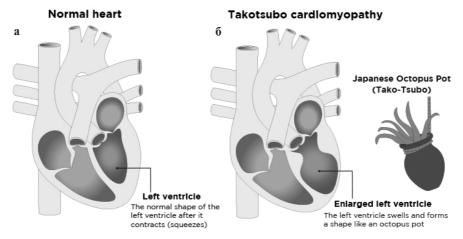
Развитие синдрома обычно вызвано острым стрессом или повторными незначительными стрессами. Стрессовые ситуации, описанные в литературе, разнообразны: смерть близкого человека, юридические проблемы, плохие финансовые новости, автомобильные аварии, стихийные бедствия, обострение хронического заболевания, послеоперационный период, использование или отказ от запрещенных наркотических лекарств [4–7]. У детей описаны случаи возникновения синдрома такоцубо во время урагана, после плавания, после эмоциональных переживаний, на фоне респираторных или желудочно-кишечных инфекций, в послеоперационном периоде [8–12].

Кроме типичного синдрома такоцубо с развитием гипокинезии верхушки левого желудочка, круговой гипокинезии средних отделов левого желудочка и с повышенной сократимостью его базальных отделов также возможны следующие формы: 1) инвертированный, или базальный, синдром при поражении базальных отделов левого желудочка сердца; 2) с поражением средних сегментов левого желудочка сердца; 3) с дисфункцией верхушек обоих желудочков; 4) с дисфункцией левого желудочка и сохранением сократимости истинного верхушечного сегмента; 5) с изолированным поражением правого желудочка.

Клиническая картина сходна с картиной инфаркта миокарда. Ввиду того что для детей частота возникновения ишемической болезни сердца невысока, дифференциальная диагностика в детской практике призвана исключить врожденные или приобретенные аномалии коронарных артерий. В клинике Мейо предложены диагностические критерии кардиомиопатии такоцубо [13]. Для постановки диагноза необходимо наличие всех 4 критериев:

- 1. Наличие транзиторной гипокинезии или акинезии средних сегментов левого желудочка. Нарушение сократимости стенки левого желудочка не должно соответствовать бассейну одной коронарной артерии.
- 2. По данным коронарографии не должно быть обструктивного поражения коронарных сосудов и признаков разрыва атеросклеротических бляшек.
- 3. Должны иметься изменения на электрокардиограмме (элевация сегмента ST или инверсия зубца T) либо повышение уровня кардиоспецифичных биомаркеров.
- 4. Должны быть исключены феохромоцитома и миокардит.

Синдром такоцубо в большинстве случаев имеет благоприятный прогноз. Восстановление функции



Puc 1. Схема изменения левого желудочка сердца при синдроме такоцубо. а — здоровое сердце с нормальной формой левого желудочка после его сокращения; б — кардиомиопатия такоцубо с увеличенным левым желудочком, принимающим форму ловушки для осьминога). https://www.heartfoundation.org.nz/your-heart/heart-conditions/takotsubo-cardiomyopathy Fig. 1. Left ventricle changes diagram in takotsubo syndrome.

левого желудочка, как правило, наблюдается в течение нескольких недель.

Представляем собственное клиническое наблюдение синдрома такоцубо у подростка со спинальной мышечной атрофией в послеоперационном периоде.

Пациент Н., 17 лет, с диагнозом: спинальная амиотрофия III типа (болезнь Кугельберга—Веландер), поступил в стационар для планового оперативного лечения в объеме удаления металлоконструкции Stryker 4,5 с дальнейшим задним корригирующим транспедикулокорпоральным комбинированным спондилодезем C_{VII} —Pelvic с костной пластикой под рентгенологическим контролем.

При поступлении отмечены дефицит массы тела — 24 кг при росте 146 см, выраженная атрофия мышц, связанная с основным заболеванием. Передвигался на инвалидном кресле с дополнительной поддержкой и посторонней помощью. В положении сидя отмечалась выраженная правосторонняя деформация позвоночника с ротацией позвонков и формирование реберного горба до 15 см справа.

В предоперационном периоде пациенту выполнялось обследование, в том числе эхокардиография, по данным которой нарушений глобальной и локальной сократимости не было выявлено, клапанный аппарат не был изменен (рис. 2). На электрокардиограмме определялось отклонение электрической оси вправо, частота сердечных сокращений 83 уд/мин, неспецифические изменения сегмента ST и зубца Т.

В условиях общей анестезии с техническими трудностями удалена металлоконструкция. Выполнена имплантация новой металлоконструкции. Проводилась аутогемотрансфузия. Объем кровопотери составил 1500 мл.

В раннем послеоперационном периоде пациент находился под наблюдением в отделении реанимации на искусственной вентиляции легких. На 2-е сутки послеоперационного периода

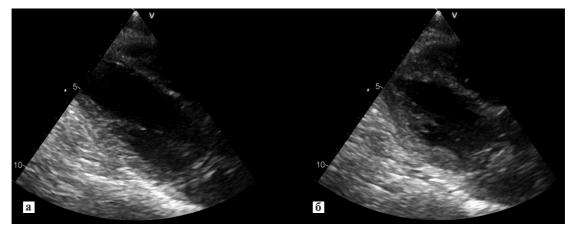
при вентиляции в режиме CPAP (continuous positive airway pressure) у пациента развилось тахипноэ до 35 в минуту, индекс $PaO_2/FiO_2 = 149$. При бронхоскопии определялось большое количество пенистой мокроты с геморрагическим компонентом, что свидетельствовало об отеке легких. Проводились диуретическая терапия, искусственная вентиляция легких в принудительном режиме с положительным давлением в конце выдоха, медикаментозная седация. Как одна из возможных причин дыхательной недостаточности не исключалось посттрансфузионное повреждение легких.

При ультразвуковом исследовании легких отмечены признаки гипергидратации легочной паренхимы в виде множественных В-линий в верхних, боковых и базальных отделах обоих легких. Признаки ателектазирования участков нижних долей обоих легких, больше справа.

На фоне применения диуретиков оксигенация улучшилась, однако спонтанное дыхание сохранялось недостаточно эффективным. Проводилась коррекция гипокалиемии, ограничительная тактика инфузионной терапии. Индекс оксигенации увеличился до 293, что позволило после санационной бронхоскопии перевести пациента на неинвазивную вентиляцию легких.

При этом по данным электрокардиографии (рис. 3) была отмечена элевация сегмента ST, а при лабораторном обследовании выявлено повышение уровня тропонина в крови до 2,14 нг/мл (при норме до 0,05 нг/мл), креатинкиназы до 1254 ед/л (при норме до 270 ед/л), КФК-МВ 42 ед/л (при норме до 24 ед/л), натрийуретического пропептида 12 352 пг/мл (при норме до 125 пг/мл).

Состояние было расценено как острый коронарный синдром с элевацией сегмента ST, пациент экстренно направлен в рентгеноперационную для выполнения коронарографии и в случае пора-



 $Puc.\ 2$. Данные эхокардиографии ребенка H. 17 лет до операции. a-диастола; 6-систола.

Fig. 2. Preoperative echocardiography of a 17-year-old child N.

a - diastole; b - systole.

жения коронарных артерий выполнения первичного чрескожного коронарного вмешательства. Проведение коронарографии было сопряжено с большими техническими трудностями: вынужденное положение больного на боку, невозможность полного разгибания рук и ног, смещение анатомических структур в грудной клетке.

На сериях коронарограмм поражение коронарных артерий выявлено не было. Отмечена анатомическая аномалия в виде отхождения огибающей артерии отдельным устьем от правого коронарного синуса (рис. 4). На серии вентрикулограмм выявлены гипокинезия 1—2 сегментов, акинезия-дискинезия 5 сегмента. Фракция выброса 40—50%.

По данным эхокардиографии также было определено появление зоны нарушенной локальной сократимости — кольцевая акинезия на среднем уровне,

более выраженная в нижних сегментах. Компенсаторная гиперкинезия базальных и верхушечных сегментов. Глобальная сократимость была также снижена, оценочно фракция выброса составила 40-50% по Симпсону (рис. 5).

Совокупность представленных результатов обследования позволила выставить диагноз: кардиомиопатия такоцубо (стресс-индуцированная локализованная дисфункция сердца).

Лечение и наблюдение за пациентом было продолжено в условиях отделения реанимации. На фоне терапии в течение 48 ч наблюдалось быстрое клиническое улучшение с купированием отека легких. Искусственная вентиляция легких прекращена на 4-е послеоперационные сутки. В динамике уровень тропонина в течение 24 ч (на 3-и послеоперационные сутки) снизился до 1,459 нг/мл. На 15-е после-



Puc. 3. Электрокардиограмма ребенка H. в остром периоде коронарного синдрома. Объяснения в тексте. *Fig. 3.* Electrocardiogram of child N. in the acute period of coronary syndrome. Explanations in the text.



Puc. 4. Кадры коронарограммы ребенка H. в остром периоде коронарного синдрома: a — левая коронарная артерия, b — правая коронарная артерия. Fig. 4. Coronary images of child N. in the acute period of coronary syndrome: a — coronary artery; b — right coronary artery.

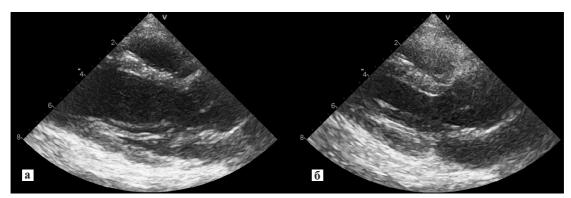
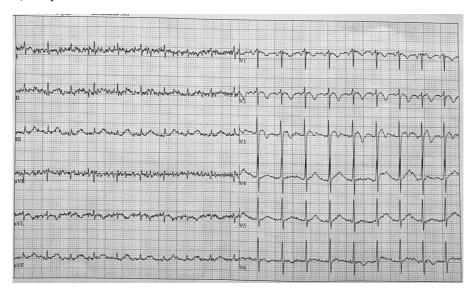


Рис. 5. Данные эхокардиографии ребенка Н. 17 лет после операции.

а – диастола; б – систола.

Fig. 5. Postoperative echocardiography of a 17-year-old child N.

a - diastole; b - systole.



 $Puc.\ 6$. Динамика электрокардиограммы ребенка H. после купирования острого состояния. Объяснения в тексте.

 $\it Fig.~6$. Electrocardiogram dynamics of child N. after relief of the acute condition. Explanations in the text.

операционные сутки выполнена контрольная эхокардиография, при которой было отмечено восстановление локальной и глобальной сократимости. Оценочно определена фракция выброса -60-65%. По данным электрокардиограммы в этом же периоде отмечена инверсия зубцов T в грудных отведениях V1 и V3 (рис. 6).

В терапии помимо искусственной вентиляции легких, вазопрессорной поддержки норадреналином, применялись бета-адреноблокаторы (бревиблок, метопролол из расчета 0,2 мг/кг), диуретики. Терапия соответствовала стандартной терапии, используемой при систолической сердечной недостаточности. Длительность лечения бета-адреноблокаторами составила 2 нед в условиях стационара. В дальнейшем прием метопролола был продолжен в амбулаторных условиях.

Стандарты для лечения синдрома такоцубо у детей не разработаны, терапия проводится эмпири-

чески. По представленным в литературе данным, применяется лечение застойной сердечной недостаточности, инотропная поддержка. В одном случае использовался лидокаин для купирования желудочковой тахикардии в остром периоде. У ряда пациентов применялись ингибиторы ангиотензинпревращающего фермента, бета-адреноблокаторы [1]. Длительность терапии неизвестна, по мнению одних авторов, она может быть ограничена нормализацией функции левого желудочка; другие авторы предлагают в качестве профилактики рецидива синдрома такоцубо пролонгировать прием бета-адреноблокаторов [1, 14].

Данный случай демонстрирует развитие синдрома такоцуба у подростка в раннем послеоперационном периоде, явившимся стрессовой ситуацией. Продемонстрирован алгоритм диагностики, контроля и лечения синдрома с благоприятным исходом и полным восстановлением функций серда.

КЛИНИЧЕСКИЕ СЛУЧАИ

ЛИТЕРАТУРА (REFERENCES)

- 1. Hernandez L.E. Takotsubo cardiomyopathy: how much do we know of this syndrome in children and young adults? Cardiology in the Young 2014; 24: (4): 580–592. DOI: 10.1017/S1047951114000080
- Sato H., Tateishi H., Uchida T. Takotsubo-type cardiomyopathy due to multivessel spasm. In: Clinical aspect of myocardial injury: from ischemia to heart failure. K. Kodama, K. Haze, M. Hom (eds). Tokyo: Kagakuhyouronsya Co, 1990; 56–64. [in Japanese]
- Prasad A., Lerman A., Rihal C.S. Apical ballooning syndrome (Tako-Tsubo or stress cardiomyopathy): a mimic of acute myocardial infarction. Am Heart J 2008; 155(3): 408–417. DOI: 10.1016/j.ahj.2007.11.008
- Kawai S., Suzuki H., Yamaguchi H., Tanaka K., Sawada H., Aizawa T. et al. Ampulla cardiomyopathy ("Takotusbo" cardiomyopathy) – reversible left ventricular dysfunction: with ST segment elevation. Japan Circ J 2000; 64: 156–159. DOI: 10.1253/jcj.64.156
- 5. Seth P., Aurigemma G., Krasnow J., Tighe D., Untereker W., Meyer T. A syndrome of transient left ventricular apical wall motion abnormality in the absence of coronary disease: a perspective from the United States. Cardiology 2003; 100(2): 61–66. DOI: 10.1159/000073040
- Gianni M., Dentali F., Grandi A.M., Sumner G., Hiralal R., Lonn E. Apical ballooning syndrome or takotsubo cardiomyopathy: a systematic review. Eur Heart J 2006; 27(13): 1523– 1529. DOI: 10.1093/eurheartj/ehl032
- 7. Bybee K.A., Kara T., Prasad A., Lerman A., Barsness G.W., Wright R.S. et al. Systematic review: transient left ventricular apical ballooning: a syndrome that mimics ST-segment elevation myocardial infarction. Ann Intern Med

Поступила: 28.01.21

Конфликт интересов:

Авторы данной статьи подтвердили отсутствие конфликта интересов и финансовой поддержки, о которых необходимо сообщить.

- 2004; 141(11): 858-865. DOI: 10.7326/0003-4819-141-11-200412070-00010
- Bajolle F., Basquin A., Lucron H., Bonnet D. Acute ischemic cardiomyopathy after extreme emotional stress in a child. Congenital heart disease 2009; 4(5): 387–90. DOI: 10.1111/j.1747-0803.2009.00277.x
- Dessardo S., Vjekoslav Tomulic, Dessardo N.S. Tako-Tsubo Syndrome in a 12-Year-Old Girl: Exhausted Heart, Not Broken Heart. Pediatr Cardiol 2011; 32: 1008–1011. DOI: 10.1007/s00246-011-0038-1
- Biteker M., Duran N.E., Civan H.A., Gündüz S., Gökdeniz T., Kaya H. et al. Broken heart syndrome in a 17-year-old girl. European journal of pediatrics 2009; 168(10): 1273–1275. DOI: 10.1007/s00431-008-0916-6
- 11. Fabi M., Testa G., Gesuete V., Balducci A., Ragni L. An unusual cardiomyopathy after physical stress in a child. Congenit Heart Dis 2013; 8(2): E45–E48. DOI: 10.1111/j.1747-0803.2011.00610.x
- Schoof S., Bertram H., Hohmann D., Jack T., Wessel A., Yelbuz T.M. Takotsubo cardiomyopathy in a 2-year-old-girl. J Am Coll Cardiol 2010; 55: e5. DOI: 10.1016/j.jacc.2009.08.050
- Prasad A., Lerman A., Rihal C.S. Apical ballooning syndrome (Tako-Tsubo or stress cardiomyopathy): a mimic of acute myocardial infarction. Am Heart J. 2008; 155(3): 408–17. DOI: 10.1016/j.ahj.2007.11.008.
- 14. Ван С.Х., Лианг Дж.Дж. Кардиомиопатия Такоцубо: этиология, диагностика и оптимизация лечения. Кардиология: новости, мнения, обучение 2015; 1(4): 8–15. [Van S.H., Liang Dzh.Dzh. Takotsubo cardiomyopathy: etiology, diagnosis, and optimal management. Kardiologiya: novosti, mneniya, obuchenie 2015; 1(4): 8–15. (in Russ.)]

Received on: 2021.01.28

Conflict of interest:

The authors of this article confirmed the lack of conflict of interest and financial support, which should be reported.