

گزارش یک مورد آنوریسم کاذب به علت برآمدگی متعدد استخوانی از نوع ارثی

دکتر بهزاد جزایری*، دکتر ابراهیم کاظمی**

چکیده:

این مقاله به معرفی یک مورد عارضه نادر ولی شناخته شده آنوریسم کاذب، در فرد دوقلو، که در اثر برآمدگی استخوانی از نوع ارثی که به شریان پوپلیتال آسیب رسانده، می‌پردازد. نکته حائز اهمیت این گزارش دوقلو بودن بیمار است. با اینکه دوقلوها حاصل یک نطفه هستند، یکی دچار عارضه رگ شده، ولی در دیگری این عارضه به وجود نیامده است.

واژه‌های کلیدی: آنوریسم کاذب، برآمدگی متعدد استخوانی از نوع ارثی، دوقلو، شریان پوپلیتال

زمینه و هدف

اکثر این برآمدگی‌های استخوانی مشکلی به وجود نمی‌آورند، ولی اگر در محلی قرار گیرند که باعث فشار روی عصب و یا رگ شوند، می‌توانند علائم به وجود آورند.

جدی‌ترین عارضه آن، تبدیل تومور خوش‌خیم، به تومور بدخیم است.^{۱و۴}

عوارض عروقی این بیماری شامل:^۵

- تغییر در مسیر رگ‌ها
- تنگی و انسداد در رگ‌ها
- آنوریسم کاذب شریانی Pseudo Aneurysm

تغییر مسیر رگ‌ها به علت برآمدگی‌های استخوانی شایع است، ولی در اکثر مواقع منجر به علائم نمی‌شود. در صورت تنگی و انسداد عروقی، علائم ایسکمی یا کاهش خون‌رسانی مشاهده می‌شود. ترومبوز شریانی و وریدی، به خصوص در عروق ناحیه پوپلیتال زانو دیده می‌شود.^{۶و۷}

در بیماری برآمدگی متعدد استخوانی از نوع ارثی (Hereditary Multiple Exostosis (HME)، رشد غیر طبیعی استخوان (Osteochondroma)، معمولاً در انتهای استخوان‌های بلند، نزدیک صفحه رشد (Epiphysis)، دیده می‌شود.

برآمدگی‌های استخوانی (Exostosis)، از سن یک سالگی دیده می‌شوند و تعداد و اندازه آنها در زمان کودکی و بلوغ افزایش پیدا می‌کند. در پایان بلوغ، با توقف رشد استخوان‌ها، رشد برآمدگی‌های استخوانی نیز متوقف می‌شود.

به دلیل اختلال در رشد استخوان‌ها، قد این گونه افراد می‌تواند کوتاه، اندازه اعضای بدن آنها نامساوی و استخوان آنها شکل غیر طبیعی داشته باشد.^{۱و۲} علت این بیماری ژن‌های غیر طبیعی، به نام EXT1 و EXT2 می‌باشند که مسئول رشد استخوان‌ها بوده و که روی کروموزم‌های ۸، ۹، ۱۱ یافت می‌شوند.^۲

نویسنده پاسخگو: دکتر بهزاد جزایری

تلفن: ۸۸۸۶۱۹۷

Email: Behzaddjzaeri@Yahoo.com

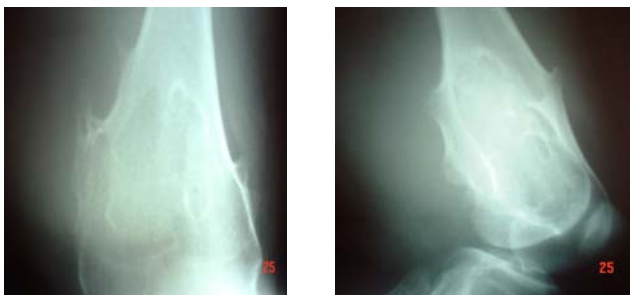
* متخصص جراحی عمومی و عروق، بیمارستان دی

** متخصص جراحی استخوان، بیمارستان دی

تاریخ وصول: ۱۳۸۴/۰۴/۰۷

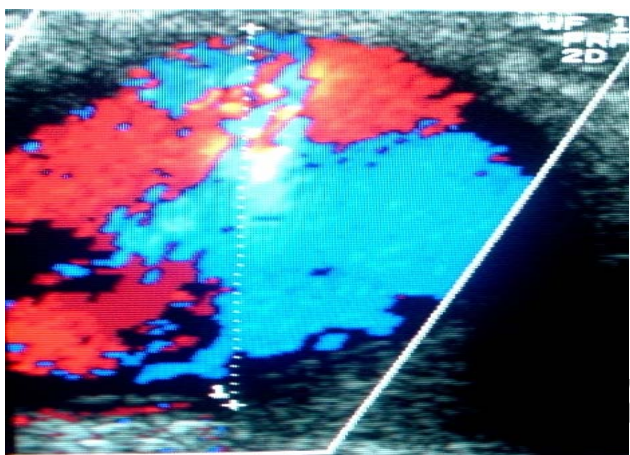
تاریخ پذیرش: ۱۳۸۴/۰۶/۰۸

www.SID.ir

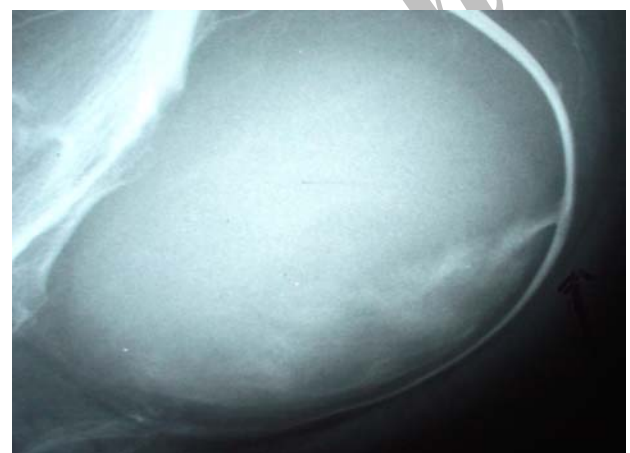


تصویر ۲- رادیوگرافی فوق برآمدگی استخوانی در انتهای استخوان ران دیده می‌شود. توجه شود که نوک پهن برآمدگی همیشه به طرف زانو و نوک تیز در جهت مخالف است.

سپس داپلر رنگی و آنژیوگرافی انجام شد که در تصویرهای زیر دیده می‌شوند.



تصویر ۳- نمای داپلر رنگی بیمار و وجود حفره آنوریسم



تصویر ۴- در این تصویر محل خروج ماده حاجب از شریان به داخل حفره دیده می‌شود. سوراخ در جدار شریان به علت آسیب توسط برآمدگی تیز استخوانی به وجود آمده است. شریان به علت خونریزی و ایجاد حفره به عقب رانده شده است و مسیر آن از محل اتصال قلبی با برآمدگی استخوانی تغییر پیدا کرده است.

آنوریسم کاذب به علت استئوکندروم، اولین بار توسط Paul در سال ۱۹۵۳ گزارش شد.^۸ این عارضه بسیار نادر می‌باشد و معمولاً در شریان سطحی ران، بازو، تیبیال خلفی، و بیش از همه در شریان پوپلیتئال در دوران پایانی رشد دیده می‌شود.

آنوریسم کاذب به معنی وجود حفره‌ای در مجاورت یک شریان است که به علت آسیب آن شریان ایجاد شده، مملو از خون و لخته است بنابراین حفره با شریان در ارتباط می‌باشد و خون از رگ به داخل حفره در جریان است. این عارضه می‌تواند در هر جای بدن که شریان به هر دلیلی آسیب دیده باشند، به وجود آید.

این مقاله به معرفی یک مورد آنوریسم کاذب در فرد دو قلو که در اثر برآمدگی استخوانی از نوع ارثی که به شریان پوپلیتئال آسیب رسانده می‌پردازد.

معرفی بیمار

بیمار دختر ۱۸ ساله‌ای است که توسط همکارم، متخصص جراحی استخوان معرفی شد. بیمار و اقوامش با تشخیص HME تحت نظر ایشان بودند. بیمار از ورم و درد در محل برآمدگی استخوان بالای زانوی چپ شاکی بود به نظر می‌رسید بی‌حال، تبار، و دردمند بود. در معاینه، توده بزرگ در قسمت داخلی انتهای ران به طور واضح مشهود بود.

توده دردناک، با قوام "استخوانی سفت"، و بدون نبض بود. صدای جریان خون (Bruit) توسط گوشی طبی شنیده نشد (تصویر شماره ۱). نبض‌های پشت زانو و دور مچ پا، از طرف پای مقابل ضعیف‌تر بودند. در معاینه علائمی از کاهش خون‌رسانی به پا دیده نمی‌شد.



تصویر ۱- توده دردناک، با قوام "استخوانی سفت" و فاقد نبض در پای چپ دیده می‌شود.

بررسی فامیل



تصویر ۵- در این تصویر مشاهده می‌کنید که حفره آنوریسم باز شده است و خون مایع و لخته توسط انگشت جراح در حال خارج شدن است. بعد از خارج نمودن لخته، خونریزی فعال و جهنده از محل اتصال حفره با شریان مشاهده شد.

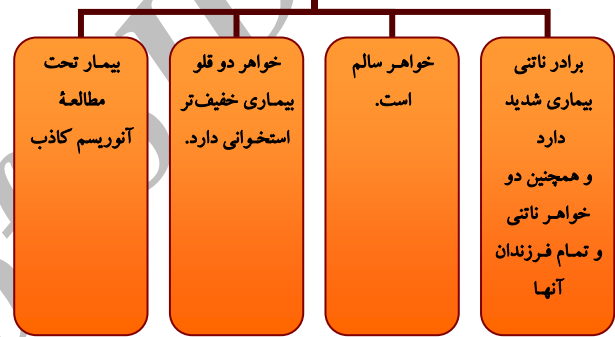
سپس محل خونریزی فعال و جهنده از شریان پوپلیتیال مشخص گردید. کنترل خونریزی با گذاشتن انگشت روی محل به سادگی قابل کنترل است و نیازی به کنترل بیشتر ندارد اتصال بین شریان و حفره آنوریسم، توسط نخ پرولین بسته شد. قسمت تیز برآمدگی استخوان هم برداشته و برای تشخیص به بخش پاتولوژی فرستاده شد. بعد از عمل نبض مچ پا قابل لمس بود.



حفره و محل دوختن شریان

تصویر ۶- در این تصویر خون و لخته و از حفره خارج شده است و اندازه حفره به خوبی دیده می‌شود. شریان پوپلیتیال و محل بخیه در شریان به خوبی مشاهده می‌شود.

پدر مبتلا و در سن ۵۳ سالگی فوت کرد. مادر سالم



نمودار شماره ۱- شجره نامه مربوط به بیمار

پدر در سن نسبتاً کم فوت نمود. علت مرگ مشخص نیست ولی دچار عوارض عروقی نبوده است. تنها عضو فامیل که دچار عارضه عروقی بوده است خود بیمار می‌باشد. با توجه به دوقلو بودن آن دو خواهر احتمالاً از یک نطفه (Monozygotic)، جالب است که شدت بیماری استخوانی در بیمار مورد نظر بیشتر بود و با عوارض عروقی همراهی داشت. یک خواهر دیگر کاملاً سالم است، البته تمام خواهران و برادر ناتنی و تمام فرزندان آنها دچار بیماری استخوانی هستند ولی دچار عوارض عروقی نمی‌باشند.

درمان

بیمار تحت بیهوشی عمومی عمل جراحی شد. بعد از برش پوست، عناصر زیر پوست، فاسیای عمقی و عضله، جراح وارد حفره رانی آنوریسم، شده سپس لخته و خون داخل حفره را تخلیه کرد.

بحث

Osteochondroma شایعترین تومور استخوان است و به نظر می‌رسد که بیشتر نمایانگر اختلال در رشد باشد تا یک تومور واقعی. ۲۰٪ تا ۵۰٪ کل تومورهای خوش‌خیم از این نوع می‌باشند.^{۱۰۹}

یافته‌های رادیولوژی منحصر بفرد می‌باشند و دقیقاً تابلوی آسیب‌شناسی را منعکس می‌کند. همانطور که نام آن اشاره دارد، **Osteochondroma** از بدنه استخوانی و کلاهیک غضروفی، تشکیل شده است. برای تشخیص، لازم است که برآمدگی استخوانی، در امتداد و متصل به استخوان "مادر" باشد. این برآمدگی‌ها می‌توانند متعدد و یا منفرد باشند. نوع متعدد آن ارثی و عوارض در آن بیشتر از نوع منفرد می‌باشد. اگر فرزندی وارث این ژن باشد، با احتمال ۹۶٪ دچار این بیماری می‌شود. اگر یکی از والدین، بیماری **HME** را داشته باشند، شانس مبتلا شدن فرزند، ۵۰٪ است (**Autosomal Dominant**). در ده درصد بیماران **HME** سابقه ارثی دیده نمی‌شود، و این موتاسیون در ژن‌ها بدون سابقه قبلی، به وجود آمده است.^۴

عوارض **HME** عبارت است از:

- تغییر در شکل و فرم بدن
- شکستگی برآمدگی‌ها
- عوارض رگ
- عوارض عصب
- به وجود آمدن کیسه (**Bursa**)
- تبدیل به بدخیمی

تبدیل برآمدگی استخوانی به تومور بدخیم در ۱٪ از بیماران مبتلا به نوع منفرد و در ۳-۵٪ بیماران مبتلا به نوع متعدد دیده می‌شود. احتمال تبدیل به **Osteochondrosarcoma**، زمانی داده می‌شود، که رشد غیر طبیعی در استخوان برآمده مشاهده شود، و ضخامت کلاهیک غضروفی بیشتر از ۱/۵ سانتیمتر باشد.

در زمان پایانی رشد بروز عارضه آنوریسم کاذب، به این علت است که در این موقع، کلاهیک غضروفی، تبدیل به استخوان می‌شود. حال، یک سطح نرم غضروفی، به یک سطح سخت و تیز استخوانی، تبدیل می‌شود. اگر این برآمدگی در مجاورت شریان قرار گیرد، با گذشت زمان و حرکت شریان روی تیزی برآمدگی، شریان سائیده، و بالاخره سوراخ می‌شود.^{۱۱} احتمال

بروز این عارضه در نوع منفرد و متعدد بیماری یکسان می‌باشد.

خونریزی از شریان آسیب دیده، توسط بافت اطراف کنترل می‌شود و حفره‌ای پر از خون مایع و لخته به وجود می‌آید. اگر ارتباط حفره با شریان آسیب دیده ادامه یابد، شرایط به وجود آمدن آنوریسم کاذب مهیا می‌گردد.

تفاوت آنوریسم کاذب و واقعی، در این است که در آنوریسم واقعی، جدار آنوریسم از بافت خود شریان است، ولی در آنوریسم کاذب، جدار آنوریسم از بافت نسوج فشرده دور حفره می‌باشد.

در صورت لخته شدن خون داخل حفره، ارتباط با شریان قطع می‌شود و آنوریسم به یک هماتوم تبدیل می‌شود. این پیشامد بیشتر در آنوریسم‌های کوچک دیده می‌شود.

اگر ارتباط با شریان ادامه یابد، با هر ضربان قلب مقداری خون به حفره وارد و از آن خارج می‌شود، و حفره به تدریج بزرگ می‌شود. ادامه ضربات چکش‌وار، نسوج اطراف را تخریب می‌کند، بالاخره پوست را هم می‌شکافد، و حفره به بیرون راه می‌یابد. در صورت بروز این عارضه، خونریزی شدید رخ می‌دهد، که می‌تواند منجر به مرگ بیمار شود.

یکی از اشتباهات فراموش نشدنی برای یک جراح این است که آنوریسم کاذب را به عنوان آبسه ساده در کشفه ران تشخیص دهد و بدون آمادگی اقدام به شکاف آن کند.

ثابت بودن شریان پوپلیتال علت عمده گرفتگی این رگ توسط برآمدگی استخوانی است. حرکت شریان از بالا توسط کانال هانتس (**Hunters Canal**)، و در قسمت پائین، توسط شاخه‌های شریان زیر زانو (**Trifurcation**)، محدود می‌شود. محدودیت حرکت شریان، امکان کنار رفتن شریان را کاهش می‌دهد، و احتمال برخورد با برآمدگی استخوانی را بیشتر می‌کند.^۸

در زمان جنگ ایران و عراق، به مدت طولانی، شایعترین علت آنوریسم کاذب در ایران جراحات جنگی بود. جراحان، برای اولین بار تجربه بی‌نظیری در درمان این عارضه کسب کردند. کمتر رگی بود که دچار این عارضه نشده باشد.

در حال حاضر، آسیب به شریان فمورال، به علت آنژیوگرافی تشخیصی و درمانی به ویژه بیماری‌های قلبی، شایعترین علت برای آنوریسم کاذب می‌باشد. در انگلستان، دو درصد بیماران بعد از آنژیوگرافی قلبی، دچار آنوریسم کاذب می‌شوند.

این بیماران عوارض درمان جراحی باز، بسیار پائین است.^{۱۴} به دلیل وجود بیماری‌های قلبی همراه با آنوریسم کاذب و نیاز به بیهوشی کامل سعی شده است که از درمان‌های ساده‌تر که با استفاده از بی‌حسی موضعی قابل انجام هستند بیشتر استفاده شود.

در پایان، نکته‌ی حائز اهمیت این گزارش، دو قلعو بودن بیمار است، که تا آنجائی که نویسنده مطلع است، در گزارش دیگری ثبت نشده است. با اینکه دو قلعوها حاصل یک نطفه هستند، یکی دچار عارضه‌ی رگ شده، ولی در دیگری این عارضه به وجود نیامده است. این می‌تواند به این دلیل باشد که عارضه آنوریسم کاذب همراه با بیماری HME بیشتر تحت کنترل عوامل اکتسابی است تا عوامل ذاتی.

تشکر

با تشکر از همکار متخصص بیهوشی جناب آقای دکتر ناعثی، بخش آنژیوگرافی، اتاق عمل (سرکار خانم عمویی) بیمارستان دی و از سرکار خانم ناهید شهیدی که ویراستاری مقاله را به عهده داشتند.

تزریق مواد مخدر به داخل رگ می‌تواند علت عمده دیگری برای آنوریسم کاذب باشد. در این شرایط عفونت همراه با آنوریسم کاذب دیده می‌شود. با افزایش تعداد معتادان تزریقی در ایران، شمار مبتلایان به این عارضه رو به افزایش است.

درمان آنوریسم کاذب توسط روش‌های زیر انجام می‌شود:

❖ حل شدن خود به خود لخته (Spontaneous Resolution)

❖ لخته شدن توسط فشار از روی پوست، با کمک سونوگرافی داپلر (Sono-Guided Compression)

❖ لخته شدن توسط تزریق ترومبین گاوی به داخل حفره، با کمک سونوگرافی داپلر^{۱۵} و^{۱۶} (Sono-Guided Thrombin Injection)

❖ لخته شدن با وارد نمودن Coil به داخل حفره از طریق شریان با استفاده از روش Endovascular

❖ روش جراحی باز

جراحی در این مورد روشی معمول بوده است و درمان جراحی معمولاً توسط تخلیه لخته و ترمیم مستقیم شریان قابل انجام است، ولی در موارد نادر، پیوند عروقی هم لازم است. در

Archive

Abstract:

**Popliteal Pseudoaneurysm in a Patient with Hereditary
Multiple Exostosis: A Case Report**

Djazaeri B. Mch.FRCS^{}, Kazemi E. MD^{**}*

This is a case report of an 18-year-old girl with Hereditary Multiple Exostosis (HME) who develops a rare but recognized complication of Pseudoaneurysm formation as a result of laceration of the popliteal artery by an exostosis. The unique feature of this case report is that the patient has an identical twin sister who has a milder form of the bone disease but has not developed vascular complication.

***Key Words: Arterial Pseudoaneurysm, Hereditary Multiple Exostosis (HME),
Identical twin, Popliteal Artery***

^{*} *Department of General and Vascular Surgery, Day Hospital, Tehran, Iran*

^{**} *Department of Orthopedic Surgery, Day Hospital, Tehran, Iran*

Archive of SID

References:

1. Solomon L (1963) Hereditary multiple exostosis. *J Bone Jt Surg* 45B: 292-304.
2. Mark D. Murphey, James J. Choi, , Mark J. Kransdorf Donald J. Flemming, and Frances H. Gannon Imaging of Osteochondroma: Variants and Complications with Radiologic-Pathologic Correlation *Radiographics*. 2000; 20: 1407-1434.
3. Wicklund CL, Pauli RM, Johnston D, Hecht JT (1995) Natural history study of hereditary multiple exostoses. *Am J Med Genet* 55: 43-6.
4. Schmale GA, Conrad EU, 3rd, Raskind WH (1994) The natural history of hereditary multiple exostoses. *J Bone Joint Surg Am* 76: 986-92.
5. Hershey SL, Lansden FT. Osteochondromas as a cause of false popliteal aneurysms: review of the literature and report of two cases. *J Bone Joint Surg Am* 1972; 54: 1765-1768.
6. Fox AD, Michaels JA, Gray DW. Occlusion of the femoral artery secondary to osteochondroma. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 1995; 9: 501-502.
7. Smits AB, vd Pavoordt HD, Moll FL. Unusual arterial complications caused by an osteochondroma of the femur or tibia in young patients. *Ann Vasc Surg* 1998; 12: 370-372.
8. Paul M. Aneurysm of the popliteal artery from perforation by a cancellous exostosis of the femur. *J Bone Joint Surg* 1953; 35: 270-271.
9. Giudici MA, Moser RP, Jr, Kransdorf MJ. Cartilaginous bone tumors. *Radiol Clin North Am* 1993; 31: 237-259.
10. Scarborough MT, Moreau G. Benign cartilage tumors. *Orthop Clin North Am* 1996; 27: 583-589.
11. Ballaro A, Fox AD, Collin J. Rupture of a popliteal artery pseudo-aneurysm secondary to a fibular osteochondroma. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 1997; 14: 151-152.
12. Paulson, E. K., Nelson, R. C., Mayes, C. E., Sheafor, D. H., Sketch, M. H., Jr., and Kliever, M. A. sonographically guided thrombin injection of iatrogenic femoral pseudo aneurysms: further experience of a single institution. *American Journal of Roentgenology* 2001; 177: 309-316.
13. Calton, W. C., Jr., Franklin, D. P., Elmore, J. R., and Han, D. C. Ultrasound-guided thrombin injection is a safe and durable treatment for femoral pseudo aneurysms. *Vascular Surgery* 2001; 35: 379-383.
14. Roberts SR, Main D, Pinkerton J Surgical therapy of femoral artery pseudoaneurysm after angiography. *Am J Surg*. 1987 Dec;154(6): 676-80.
15. Interventional Procedure Overview of thrombin injections for pseudoaneurysms, December 2002 Available from: www.nice.org.uk/ip/17/overview.

Archive of SID