

Solitarna neurocisticerkoza: prikaz slučaja i pregled literature

Solitary neurocysticercosis: case report and short review

Irena Gašparić, Zdravko Andrić, Sandra Gašparić, Goran Šantak*

Sažetak

Solitarna neurocisticerkoza je vrlo rijedak oblik bolesti CNS-a u Hrvatskoj. Obično se javlja u multiploj formi, a rezultat je prodora larve *Teniae solium* u moždano tkivo i njezinoga razvoja unutar ciste. Ovisno o lokalizaciji unutar CNS-a manifestira se fokalnim ili generaliziranim epileptičkim napadajima, senzomotoričkim deficitom, intelektualnim ili psihološkim ispadima, razvojem hidrocefalusa, a može i doživotno ostati asimptomatska. Prikazali smo bolesnicu u dobi od 18 godina s pojavom prvog epileptičkog napadaja tipa grand mal. Učinjenom neuroradiološkom obradom nalazi se temporalno lijevo ovalna tumorska tvorba. Neurokirurškim zahvatom ekstirpirana je tumorska tvorba, a patohistološki nalaz upućuje na kalcificirani cisticerk. Po provedenom liječenju stanje bolesnice je dobro, bez neuroloških ispada i diseminacije parazitarne bolesti. Cilj ovoga rada je prikazati kako je u slučaju pojave prvog epileptičkog napadaja i radiološki verificirane nejasne tumorske tvorbe potrebno diferencijalno dijagnostički razmišljati i o solitarnom cisticerk granulomu.

Ključne riječi: solitarna cisticerkoza, mozak, epilepsija grand mal

Summary

Solitary neurocysticercosis is a very rare form of CNS disease in Croatia, and it normally occurs as multiple neurocysticercosis. The disease is caused by an infection of the brain tissue with larval stage of *Taenia solium* and its development within a cyst. Depending on its position within the CNS, it manifests itself through focal or generalised epileptic seizures, somatosensory deficits, intellectual or psychological dysfunction, sporadic development of hydrocephalus, but it may remain asymptomatic permanently. The paper discusses an 18-year-old patient who suffered her first grand mal epileptic seizure. A neuroradiological assessment detected an oval tumour mass in the left temporal lobe. The tumour mass was extirpated through a neurosurgical procedure, and a pathohistological diagnosis indicates a calcified cysticercus. Following the treatment, the patient's condition is good, with no neurological episodes or parasitic disease dissemination. This paper aims to demonstrate that differential diagnostic thinking is needed to consider the solitary cysticercus granuloma in cases of unclear solitary tumorous masses.

Key words: solitary cysticercosis, brain, epilepsy, grand mal

Med Jad 2014;44(1-2):63-66

Uvod

Cisticerkoza je parazitarna bolest uzrokovana larvom *Teniae solium*. Prodorom parazita u središnji živčani sustav, mozak ili, u rijetkim slučajevima, i u kralježničnu moždinu, razvija se neurocisticerkoza.

Najčešća endemska područja neurocisticerkoze su Indija, Azija, Južna Afrika, a u EU se javlja kao posljedica čestih migracija stanovništva u Portugalu, Španjolskoj i Francuskoj. U našoj zemlji bolest se javlja sporadično.² U jednakom omjeru javlja se i u

* **Opća županijska bolnica Požega**, Odjel za neurologiju (Irena Gašparić, dr. med.), Odjel za infektologiju (mr. sc. Zdravko Andrić, dr. med.), Odjel za patologiju (Sandra Gašparić, dr. med.), Odjel za kirurgiju (dr. sc. Goran Šantak, dr. med.)

Adresa za dopisivanje / *Correspondence address*: Opća županijska bolnica Požega, Odjel neurologije, Osječka 105, 34000 Požega, e-mail: irena.gasparic77@gmail.com

Primljeno / *Received* 2013-09-24; Ispravljeno / *Revised* 2013-12-17; Prihvaćeno / *Accepted* 2013-12-30

muškaraca i žena.^{1,14} Klinička prezentacija neurocisticerkoze ovisi o broju cisticerka, njihovoj lokalizaciji, lokalnoj upalnoj reakciji i spaciokompresivnom učinku.

Nerijetko bolest počinje pojavom epileptičkog napadaja, a u kompliciranim slučajevima i epileptičkog statusa. Fokalni neurološki ispadi opisani su u oko 20% bolesnika s neurocisticerkozom. Javljaju se simptomi oštećenja piramidnog puta, moždanoga debela, te ekstrapiramidni i kognitivni poremećaji.^{3,4}

Neurocisticerkoza se uobičajeno dijagnosticira neuroradiološkim pretragama, MSCT i MRI mozga i kralježnične moždine, te laboratorijskim nalazima. Enzyme-linked immunosorbent assay (ELISA) pokazuje senzitivnost u oko 50% slučajeva i specifičnost u oko 65% bolesnika.⁹ EITB (enzyme linked immunoelectrotransfer blot assay) pokazuje visoku senzitivnost pretrage u 98% do 100% slučajeva. Kada je parazit lociran u parenhimu mozga, rezultat analize cerebrospinalnog likvora može biti normalan.¹⁹

U oko 50-80% slučajeva nalazi se patološki nalaz kad je parazit u bazalnim cisternama i ventriklima. Nalaz cerebrospinalnog likvora uključuje pojavu mononuklearne pleocitoze, normalnu razinu glukoze, snižene proteine, povišen IgG, a u pojedinim slučajevima i oligoklonalne vrpce.^{5,6} Nalaz eozinofilije u likvoru je čest, ali nije specifičan, te se nalazi i kod tuberkuloznog meningitisa i neurosifilisa.

Cisticerkoza mozga je važan dijagnostički i terapijski problem.²⁴

Diferencijalno dijagnostički pojava cista može potaknuti sumnju na absces mozga, tumore, toksoplazmozu, kraniofaringeom, mikotične granulome, neurosarkoidozu, karotidnu bolest i moždani udar. Ako se bolest na vrijeme dijagnosticira prognoza može biti dobra. Provodi se terapija antiparazitarnim lijekovima, kortikosteroidima i antiepilepticima.²⁰

Prikaz bolesnice

18-godišnja bolesnica primljena je u hitnoj službi na Odjel neurologije radi pojave prvog epileptičkog napadaja tipa grand mal.

Iz medicinske dokumentacije se vidi da je porod i rani psihomotorni razvoj protekao uredno. U dobi od deset godina liječena je na Dječjem odjelu radi dehidracije izazvane akutnim gastroenterokolitisom i gubitkom svijesti. Drugih težih bolesti nije bilo.

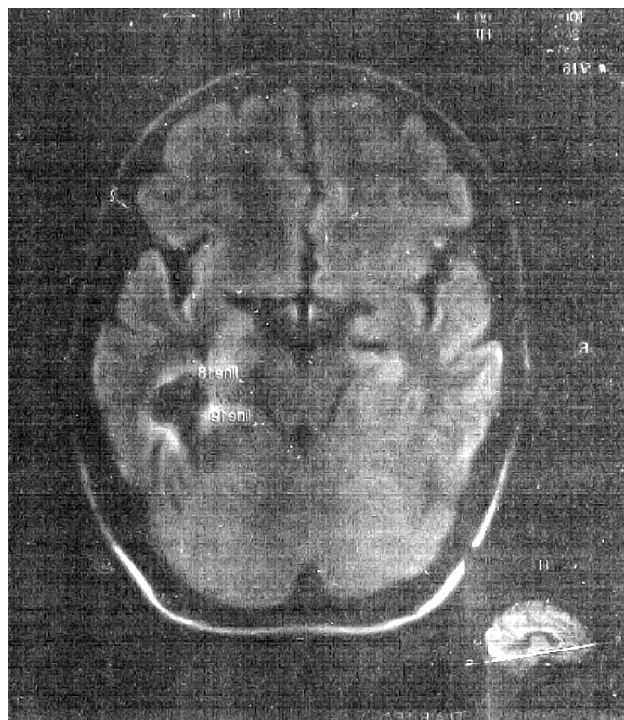
Neurološki status je u granicama normale.

U laboratorijskim nalazima SE: 50, CRP: 4,9, Hgb: 113, HCT: 0,33, MCV: 89, Tr: 583, L: 6,89, Seg: 52%, Ly: 34%, Mo: 7%, Eo: 7%, GUK: 6,57 mmol/L, urea: 2,56, kreatinin: 62,9, Na: 140, K: 4,6,

Kl: 99,0, bilirubin: 3,5, AST: 44, ALT: 50, GGT: 23, AF:85

EEG nalaz pokazuje cerebralnu aktivnost u alfa frekvencijama 8-10 Hz, amplitude 20-40 mikrovolti, a djelomično se blokira otvaranjem očiju. Iznad svih regija povremeno se interponiraju srednje voltažni theta valovi 5-7Hz, bez uočljive asimetrije. Nema paroksizmalnih izbijanja. Na FS i HV bez novih promjena.

Zaključno, nalaz je u granicama normale. Hitni MSCT mozga pokazuje tumorsku, jasno ograničenu tvorbu, djelomice septiranu temporalno lijevo. U daljnjoj obradi učini se MR mozga s kontrastom. Nalaz upućuje na ovalnu dobro ograničenu leziju temporalno lijevo, neposredno kranijalno od piramide temporalne kosti, bez znatnijega edema i kompresije. Nakon aplikacije kontrasta, lezija postaje višeg signala, posebice rubni dijelovi, a djeluje i septirano.



Slika 1. MR mozga: ovalna dobro ograničena lezija, temporalno lijevo, neposredno kranijalno od piramide temporalne kosti, bez znatnijega edema i kompresije. Nakon aplikacije kontrasta, lezija postaje višeg signala, posebice rubni dijelovi, a djeluje i septirano.

Picture 1 Brain MRI: oval well limited lesion temporal left and directly cranial from the pyramid temporal bone without significant edema and compression. Following contrast application, the lesion acquires more signals, particularly the edges and also appears septated

Konzultiran je neurokirurg, a radi sumnje na tumorsku tvorbu indicira se operativno liječenje. U vanjskoj suradnoj ustanovi u Klinici za neurokirurgiju učini se kraniotomija i ekstirpacija tumorske tvorbe. PHD nalaz upućuje na kalcificirani cisticerk.



Slika 2. Temporalno lijevo uz piramidu se vidi kalcificirana tvorba.
Picture 2. Calcified formation visible at temporal left along the pyramid



Slika 3. CT mozga: ovalna hipodenzna, relativno dobro ograničena tvorba, djelomice septiranog izgleda
Picture 3. Brain CT: oval hypodense relatively well limited formation, partially septated appearance

Nalaz serološke pretrage (ELISA test) na cisticerkozu je negativan.

Postoperativni tijek protekao je uredno, a bolesnica se dobro oporavila, bez neuroloških ispada i znakova diseminacije parazitarne bolesti.

Diskusija i pregled literature

U prikazu literature koristili smo publikacije objavljene u MEDLINE. Najčešća istraživanja o temi neurocisticerkoze učinjena su u Indiji, koja je endemsko područje za tu bolest. Istraživanja uključuju prikaze rezultata studija, originalne izvorne članke, prikaze atipičnih lokalizacija i kliničkih manifestacija bolesnika oboljelih od neurocisticerkoze.

Najčešća klinička manifestacija solitarne neurocisticerkoze je pojava epileptičkog napadaja, a u kompliciranim slučajevima i epileptičkog statusa. Parcijalni napadaji sa sekundarnom generalizacijom javljaju se u oko 80,6% bolesnika sa solitarnim cisticerk granulomom. U Hrvatskoj se neurocisticerkoza javlja sporadično, najčešće kao multipla forma, a rijetko i solitarna. Studije su pokazale da je seroprevalencija infekcijom *Teniae solium* u 1,5% u bolesnika s epilepsijom.¹¹

Hidrocefalus i demencija su najteže kliničke manifestacije neurocisticerkoze. Prema podacima iz literature, hidrocefalus se razvija u 90,1% bolesnika, u 6,2% intrakranijske lezije sa žarišnom simptomatologijom, a u 2,8% pseudotumor cerebri.¹²

J. Caballero i suradnici opisuju Bruns sindrom uzrokovan cisticerkom lokaliziranim u trećoj i četvrtoj komori mozga i malom mozgu, a prezentira se jakim glavoboljom, povraćanjem i ataksijom. Bolest može progredirati do kome i smrtnoga ishoda.⁴ Fokalni neurološki ispadi opisani su u oko 20% bolesnika s neurocisticerkozom. Javljaju se simptomi oštećenja piramidnog puta, ekstrapiramidni poremećaji, Claude's sindrom – sindrom moždanoga debla s afekcijom četvrtog moždanog živca i hemiataksijom uzrokovan cisticerkom.

Jha i suradnici opisuju pojavu vizualnih halucinacija kao inicijalni simptom neurocisticerkoze.⁶

Početak bolesti može se manifestirati depresijom. Studije su pokazale da je incidencija depresije u grupi bolesnika s neurocisticerkozom veća nego u općoj populaciji, a jednako je visoka i u drugim kroničnim bolestima.⁷ Dio kliničke slike bolesti mogu biti i kognitivni poremećaji, osobito oštećenja memorije, promjene govora, izvršnih funkcija, te vizuospacijalni poremećaji.

Rijetko je opisana intramedularna lokalizacija cisticerka, a manifestira se motoričkim i osjetnim ispadima. Ukoliko se na vrijeme prepozna skoleks i

provede adekvatna terapija, prognoza može biti dobra.⁸ Ciste u komorama ili periventrikularnim prostorima opstruiraju cirkulaciju likvora s razvojem intrakranijske hipertenzije.¹⁰ Rijetko su opisani slučajevi arahnoiditisa ili granuloznog ependimitisa, te encefalitisa, kao posljedica upalnog odgovora i infestacije parenhima brojnim cisticerkima.²⁰ Istraživanja su pokazala da djeca imaju češće parenhimske infestacije parazita s pojavom epilepsije, dok se u odraslih bolest češće manifestira hidrocefalusom i demencijom.^{10,12}

Intraselarna cisticerkoza daje ispade vidnoga polja u 67% slučajeva, dok su endokrinološki poremećaji pronađeni u 56% oboljelih (panhipopituuitarizam, hiperprolaktinemija, diabetes insipidus, izolirana hipotireoza).¹³ Ishemijska cerebrovaskularna bolest je relativno česta, ali nedovoljno prepoznata komplikacija cisticerkoze.¹⁵ Nastaje kao posljedica lokalnog upalnog odgovora i vaskulitisa s okuzijom malih krvnih žila mozga. Prezentiraju se kao lakunarni infarkti, a rjeđe se razvijaju opsežni cerebralni infarkti. Javljuju se u oko 3% slučajeva bolesnika s neurocisticerkozom.^{16,17} Moguća je i pojava hemoragija uzorkovanih rupturom mikroaneurizmi.¹⁸ Pleomorfizam kliničkih manifestacija neurocisticerkoze ovisi o broju i lokalizaciji lezija cisticerka. Iako nismo endemsko područje i bolest se uglavnom javlja sporadično, u slučaju pojave neuroloških i/ili psihijatrijskih poremećaja, potrebno je diferencijalno dijagnostički razmišljati i o cisticerkozi.

Literatura

- Gubbay AD, Brophy BP, Henley S, Sage M. Neurocysticercosis. *J Clin Neurosci*. 1998; 5:203-7.
- Titlic M, Tonkic A, Jukic I, et al. Neurocysticercosis - non specific clinical and neuroradiological presentation. *Bratisl Lek Lysty*. 2007;108:414-6.
- Sinha S, Sharma BS. Neurocysticercosis: a review of current status and management. *J Clin Neurosci*. 2009;16:867-76.
- Bickerstaff ER, Cloake PC, Hughes B, Smith WT. The racemose form of cerebral cysticercosis. *Brain*. 1952;75:1-18.
- Jimenez Caballero PE, Mollejo Villanueva M, Marral Alonso C, Alvarez Jejerina A. Bruns syndrome: description of a case of neurocysticercosis with pathological study. *Neurologia* 2005; 20:86-9.
- Singhi P. Neurocysticercosis. *Ther Adv Neurol Disord*. 2011;4:67-81.
- Jha S, Kumar R. Migraine-like visual hallucinations as the presenting manifestations of focal seizures in neurocysticercosis. *J Neuroophthalmol*. 2007;27:300-3.
- Sinha S, Sharma BS. Neurocysticercosis: a review of current status and management. *J Clin Neurosci*. 2009; 16:867-76.
- Del Brutto OH, Garcia HH. Intramedullary cysticercosis of the spinal cord: a review of patients evaluated with MRI. *J Neurol Sci*. 2013;331:114-7.
- Rodriguez S, Wilkins P, Dorny P. Immunological and molecular diagnosis of cysticercosis. *Pathog Glob Health*. 2012;106:286-98.
- Meštrović T, Sviben M, Vilibić-Čavlek T, Ljubin-Sternak S, Tabain I, Mlinarić-Galinović G. Seroprevalence of *Taenia solium* infections in Croatian patients presenting with epilepsy. *J Helminthol*. 2012; 86:259-62.
- Sinha S, Sharma BS. Intraventricular neurocysticercosis: a review of current status and management issues. *Br J Neurosurg*. 2012;26:305-9.
- Song TJ, Sush SH, Cho H, Lee KY. Claude's syndrome associated with neurocysticercosis. *Yonsei Med J*. 2010;51:978-9.
- Matushita H, Pinto FC, Cardeal DD, Teixeira MJ. Hydrocephalus in neurocysticercosis. *Childs Nerv Syst*. 2011;27:1709-21.
- Del Brutto OH, Del Brutto VJ. Intracellular cysticercosis: a systematic review. *Acta Neurol Belg*. 2013; 113:225-7.
- White AC Jr. Neurocysticercosis: updates on epidemiology, pathogenesis, diagnosis and management. *Annu Rev Med*. 2000;51:187-206.
- Brainagarmenteria F, Del Brutto OH. Lacunar syndrome due to neurocysticercosis. *Arch Neurol*. 1989; 46:415-7.
- Barinaagarmenteria F, Cantu C. Neurocysticercosis as a cause of stroke. *Stroke*. 1992; 23:1180-1.
- Marquez JM, Arauz A. Cerebrovascular complications of neurocysticercosis. *Neurologist*. 2012;18:17-22.
- Del Brutto OH. Cysticercosis and cerebrovascular disease: a review. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1992;55:252-4.
- Tian Xj, LiJY, Xue YP. Preliminary analysis of cerebrospinal fluid proteome in patients with neurocysticercosis. *Chin Med J (Engl)*. 2009;122: 1003-8.
- Garcia HH, Pretell EJ, Gilman RH, et al. A trial of antiparasitic treatment to reduce the rate of seizures due to cerebral cysticercosis. *N Engl J Med*. 2004; 350:249-58.
- Jorge G, Burneo, Ian Plener, Hector H. Garcia. Neurocysticercosis in a patient in Canada. *CMAJ*. 2009;180:639-642.
- Talan-Hranilovic J, Sajko T, Negovetic I, Lupret V, Kalousek M. Cerebral cysticercosis and echinococcosis: a preoperative diagnostic dilemma. *Arch Med Res*. 2002;33:590-4.