

Развитие экспрессивной речи после хирургической резекции лобной доли с включением зоны Брока у ребенка 2 лет: клинический случай

С.Л. Моисеева, Т. Хартлиб, П. Винклер, М. Кудернатч, М. Штаудт

Нейропедиатрическая клиника и клиника по нейрореабилитации, эпилептологический центр для детей и подростков, Schoen Klinik Vogtareuth; Германия, D-83569 Фогтаройт, Кранкенхаус-штрассе, 20

Контакты: Светлана Львовна Моисеева Smoiseeva@schoen-kliniken.de

Авторы представляют описание клинического наблюдения менингиоматоза (ангиоматоза менингеальных оболочек) в левой лобной доле у ребенка 2 лет. Особенностью заболевания были эпизоды бессудорожного эпилептического статуса на фоне лихорадки при отсутствии эпилептических приступов между этими эпизодами. Опухолевое образование было диагностировано при магнитно-резонансной томографии, проведенной после 1-го эпилептического статуса в возрасте 14 мес. Прехирургическое обследование и нейрохирургическая операция проводились в детской неврологической клинике Schoen Klinik Vogtareuth (Фогтаройт, Германия). Видеоэлектроэнцефалографический мониторинг в течение 7 дней продемонстрировал региональное замедление в левых лобно-центральных и височно-теменных областях с фронтальным распространением. Повторная магнитно-резонансная томография подтвердила отсутствие роста опухоли. В возрасте 2 лет 4 мес пациентке было проведено частичное удаление лобной доли слева. К моменту оперативного лечения отмечалась задержка развития экспрессивной речи. Сразу после успешно проведенной операции была отмечена положительная динамика в речевом развитии в виде появления экспрессивной речи уже на 2-й день после операции. При нейропсихологическом тестировании через 6 мес после операции уровень развития речи практически соответствовал возрастной норме.

В статье дискутируется вопрос постоперационной латерализации центра речи после хирургического удаления центра Брока.

Ключевые слова: дети, лобэктомия слева, реорганизация речи

Для цитирования: Моисеева С.Л., Хартлиб Т., Винклер П. и др. Развитие экспрессивной речи после хирургической резекции лобной доли с включением зоны Брока у ребенка 2 лет: клинический случай. *Русский журнал детской неврологии* 2019;14(2):49–52.

DOI: 10.17650/2073-8803-2019-14-2-49-52

THE DEVELOPMENT OF THE EXPRESSIVE SPEECH AFTER SURGERY IN BROCA'S AREA IN TWO-YEAR-OLD CHILD: A CASE REPORT

S.L. Moiseeva, T. Hartlieb, P. Winkler, M. Kudernatsch, M. Staudt

Neuropediatric Clinic and Clinic for Neurorehabilitation, Epilepsy Center for Children and Adolescents, Schoen Klinik Vogtareuth; 20 Krankenhausstrasse, D-83569 Vogtareuth, Germany

The case history of a two-year-old child with meningo-angiomatosis of the left frontal lobe is described in this article. The special features of the clinical manifestations were two episodes of nonconvulsive status epilepticus and absence of seizures between these episodes. The diagnosis was suspected at the age of 14 months after magnetic resonance imaging investigation. The presurgical investigation/diagnostics before the neurosurgery and the neurosurgery were performed in the Department for Children's Neurology of Schoen Klinik Vogtareuth (Germany). The results of electroencephalographic video monitoring over 7 days showed derangements in the left fronto-central and temporo-parietal regions. The repeated magnetic resonance imaging showed no progression of tumor growth. At the age of 2 years and 4 months the girl had been operated. A subtotal lobectomy was carried out. The patient showed a positive trend of speech development after the operation. The question of a lateralization of speech center after surgery in Broca's area is debated in this article.

Key words: children, left frontal lobectomy, reorganization of language

For citation: Moiseeva S.L., Hartlieb T., Winkler P. et al. The development of the expressive speech after surgery in Broca's area in two-year-old child: case report. *Russkiy zhurnal detskoy neurologii = Russian Journal of Child Neurology* 2019;14(2):49–52.

Известно, что у большинства людей центр речи располагается в левом полушарии [8]. Провести так называемый маппинг центра речи (т.е. определить его латерализацию) можно с помощью различных инструментальных методов исследования [1, 7, 12].

У подавляющего большинства взрослых пациентов повреждение левой гемисферы приводит к потере речевых функций [3]. У детей за счет высокой пластичности мозга возможна реорганизация центров речи [6].

Целью этой статьи было описание особенностей развития экспрессивной речи у пациентки 2 лет с опухолью левой лобной доли. Представляем собственное клиническое наблюдение.

Клинический случай

Пациентка С., 2 лет, поступила в эпилептологический центр Schoen Klinik Vogtareuth с диагнозом «подозрение на высококодифференцированную опухоль в левой лобной доле, состояние после повторного бессудорожного эпилептического статуса».

Перинатальный анамнез: ребенок от 2-й беременности, родители здоровы. Беременность протекала без осложнений. Роды путем кесарева сечения на 39-й неделе беременности. **Наследственный анамнез:** 9-летняя родная сестра пациентки наблюдается у детского невролога в течение последних 2 лет по поводу тиков лицевой мускулатуры.

Двигательное развитие соответствовало возрасту, отмечена задержка речевого развития. Первые слова были произнесены в возрасте 15 мес, словарный запас на момент осмотра (в возрасте 2 лет) состоял из 6 коротких слов.

Anamnesis morbi: в возрасте 14 мес пациентке была проведена плановая вакцинация против ветряной оспы. Через 3 дня после вакцинации отмечалось повышение температуры тела до 40 °С. На 3-й день девочка в течение 3 ч не отвечала на обращения, не контактировала с родителями, становилась все более апатичной и сонливой. Это состояние было расценено как 1-й бессудорожный эпилептический статус, который был купирован после ректального введения диазепама в приемном отделении детской клиники. В последующие 3 мес эпилептические приступы отсутствовали. В возрасте 17 мес на фоне респираторной инфекции с лихорадкой родители отметили повторное появление у ребенка клинической

картины бессудорожного эпилептического статуса: отсутствие контакта с окружающими, постепенное усиление сонливости. Длительность 2-го эпизода эпилептического статуса составила 2 ч, он был купирован при внутривенном введении фенобарбитала.

В стационаре в терапию был введен вальпроат (орфирил лонг) в дозе 30 мг/кг/сут. На фоне приема вальпроата в течение 3 мес, до поступления в наше отделение, эпилептические приступы отсутствовали и побочные явления не отмечались.

Электроэнцефалография (ЭЭГ) в состоянии бодрствования в возрасте 14 мес (первичная госпитализация после 1-го эпизода эпилептического статуса) выявила эпилептиформную активность в левых лобно-центральных отведениях. При ЭЭГ в состоянии сна в этот период зарегистрирован очаг дельта-активности в левых центральных отведениях.

Магнитно-резонансная томография (МРТ) головного мозга в возрасте 14 мес выявила опухолевое образование, подозрительное на ганглиоглиому, в левой лобной доле. **МРТ позвоночника:** без изменений. **МРТ черепа** в возрасте 17 мес (во время 2-й госпитализации): увеличение опухоли не отмечено.

При осмотре в стационаре неврологических нарушений не выявлено. Девочка праворукая.

Высокоразрешающая МРТ с введением контрастного вещества под наркозом подтвердила наличие ганглиоглиомоподобного, не накапливающего контрастное вещество, кортикомедулярного образования в базальной области левой лобной доли (рис. 1, 2). Размеры опухоли при сравнении с данными предыдущего обследования не изменились.

При проведении видео-ЭЭГ-мониторинга выявлены региональные нарушения в виде интермиттирующего замедления в левой лобно-центральной и височной областях с распространением фронтально.

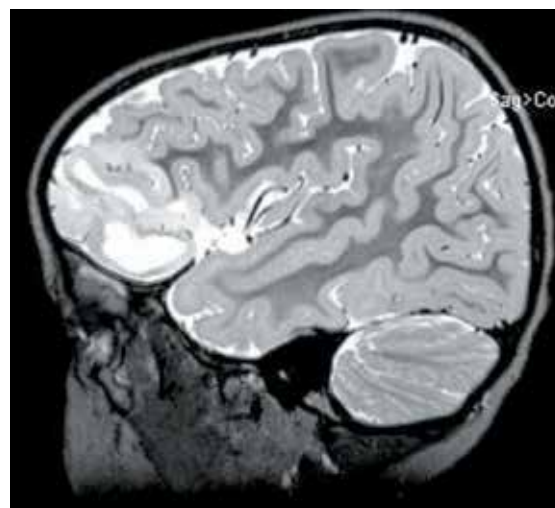
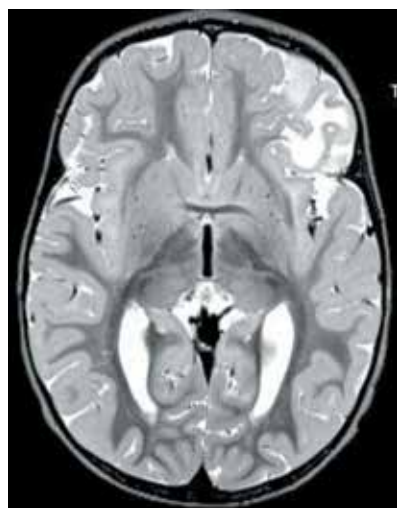


Рис. 1. Пациентка С., магнитно-резонансная томография в режиме T2: опухоль в левой лобной области
Fig. 1. Patient S., T2-weighted magnetic resonance image: tumor in the left frontal area

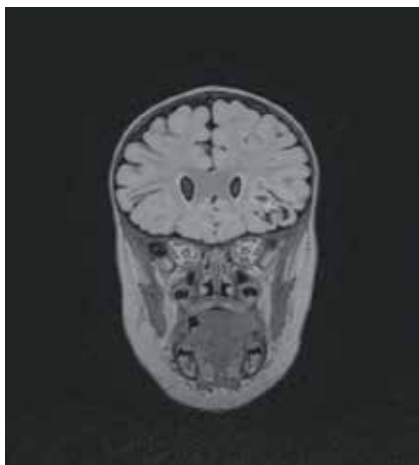


Рис. 2. Пациентка С., магнитно-резонансная томография в режиме T1: опухоль в левой лобной области
Fig. 2. Patient S., T1-weighted magnetic resonance image: tumor in the left frontal area

Эпилептиформная активность и эпилептические приступы не зарегистрированы.

Клинический случай пациентки С. был представлен на междисциплинарной конференции в нашем эпилептологическом центре. Принято решение о проведении плановой операции — резекции лобной доли слева. Операция выполнена без осложнений. Гистопатологическое исследование удаленной опухоли подтвердило ее доброкачественный характер — был диагностирован менингиоангиоматоз. На момент операции возраст девочки составил 2 года 4 мес. На 2-й день после операции отмечено появление экспрессивной речи.

При постоперативном плановом контроле через 6 мес (в возрасте 2 года 10 мес) пациентке проведено обследование, включавшее ЭЭГ в состоянии бодрствования и сна (результат: без патологических изменений), МРТ головного мозга (показано отсутствие видимых остатков опухоли (рис. 3)), а также психологическое тестирование с целью оценки когнитивного развития.

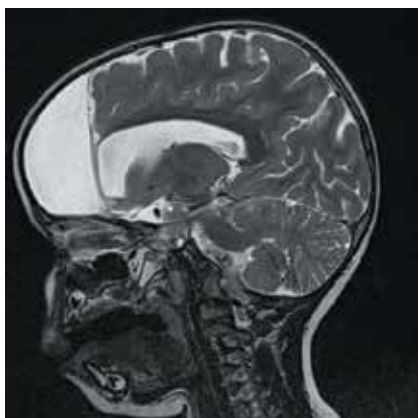


Рис. 3. Пациентка С., магнитно-резонансная томография в режиме T2 (после операции)
Fig. 3. Patient S., postoperative T2-weighted magnetic resonance image

Выявлена положительная динамика развития речевых функций: уровень развития речи ребенка соответствовал возрасту 2 года 6 мес.

Известно, что 10 % всех людей являются левшами или бимануалами, остальные 90 % праворукие. У правшей в 99 % случаев и у левшей в 70 % случаев центр речи располагается в левом полушарии, у оставшихся 30 % левшей — в обеих гемисферах [8].

Наша пациентка С. была праворукой, и потому с большой вероятностью речевой центр у нее располагался в левой гемисфере. Предположение о том, что область Брока располагалась в пределах опухоли, могло подтверждаться также и имеющимся у девочки легким нарушением речи: в 2-летнем возрасте девочка могла произнести только 6 коротких слов.

Из-за возрастных ограничений мы не могли провести маппинг центра речи. Современная диагностика локализации речевых центров требует высокой мотивации и активного сотрудничества пациента и исследователя. Общеизвестными диагностическими исследованиями являются функциональная МРТ, Вада-тест, функциональная транскраниальная доплеровская сонография, измерение и сравнение толщины коры центрального региона и языковых центров [1, 7, 12]. Обширные зоны поражения левой гемисферы перинатального генеза могут приводить к организации речевых центров в правом полушарии [2]. По данным одних исследований, вновь возникшие в правом полушарии центры речи располагаются в симметричных (гомоторных) относительно классических центров областях, при этом отсутствуют какие-либо отклонения речевых функций от нормы [4, 9]. По другим данным, топография формирования новых центров речи при поражении мозга в раннем возрасте зависит от времени формирования повреждения (в раннем или последнем триместре беременности, в перинатальном или постнатальном периоде), локализации поражения (перивентрикулярное или кортикально-субкортикальное), исходного уровня речевого развития [3].

Доказаны отдельные закономерности, позволяющие прогнозировать вероятность формирования атипичных центров речи. Возможность реорганизации центров речи тем выше, чем моложе пациент на момент поражения левого полушария [6]. Развивающийся мозг ребенка обладает значительно большим потенциалом реорганизации, чем мозг взрослого [5, 10]. Подтверждением этого является тот факт, что у подавляющего большинства взрослых пациентов повреждение левой гемисферы приводит к потере речевых функций [9]. Еще в 1977 г. Rasmussen и Milner показали, что по неизвестной причине реорганизация центров речи происходит чаще при локализации очагов поражения в участках, не контактирующих напрямую с классическими областями Брока и Вернике,

а у пациентов с перивентрикулярным поражением белого вещества возможность формирования правосторонних центров речи находится в прямой зависимости от степени структурных нарушений в левой моторной области (зона иннервации лица и артикуляции) [11].

Предполагается возможность реорганизации центров речи и в пределах одного полушария мозга. При этом левши имеют меньше шансов для этого [4].

Вопрос о том, в каком возрасте еще возможна интергемисферная реорганизация центров речи, продолжает активно дискутироваться. Считается, что такое восстановление речевых центров возможно даже на 4-м году жизни [9].

При подготовке плана операции мы исходили из этих научных данных. Мы предполагали, что такие факторы, как пластичность мозга нашей 2-летней пациентки, короткий эпилептический анамнез (2 эпизода бессудорожного эпилептического статуса на фоне лихорадки в течение 3 мес), отсутствие типичной эпилептиформной активности на интериктальной записи ЭЭГ, свободный от лезиональных повреждений центральный регион, будут способствовать восстановлению речевых функций в послеоперационном периоде. Наша гипотеза была подтверждена: пациентка С. заговорила на 2-й день после операции, а через 6 мес проведенное нейропсихологическое обследование показало, что развитие речи практически соответствует возрастной норме.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Artzi M., Sharan S.I., Weinstein M. et al. Cortical reorganization following injury early in life. *Neural Plast* 2016;8615872. DOI: 10-1155/2016/8615872.
2. Francois C., Tipolles P., Bosch L. et al. Language learning and brain reorganization in a 3.5-year-old child with left perinatal stroke revealed using structural and functional connectivity. *Vortex* 2016;77:95–118. DOI: 10.1016/j.cortex.2016.01.010.
3. Lidzba K., Staudt M. Development and (re)organization of language after early brain lesions: Capacities and Limitation of the brain plasticity. *Brain Lang* 2008;106:165–6. DOI: 10.1016/j.bandl.2008.05.003.
4. Lidzba K., Wilke M., Staunt M. et al. Reorganisation of the cerebro-cerebellar network of language production in patients with congenital left-hemispheric brain lesions. *Brain Lang* 2008;106:204–10. DOI: 10.1016/j.bandl.2007.11.003.
5. Lidzba K., Staudt M., Zielke F. et al. Pre-stroke/poststroke fMRT in Aphasia: perilesional hemodynamic activation and language recovery. *Neurology* 2012;78:289–91.
6. Liegeois F., Connelly A., Cross J.H. et al. Language reorganization in children with early onset lesions of the left hemisphere: an fMRI study. *Brain* 2004;127:1229–36. DOI: 10.1093/brain/awh159.
7. Mate A., Lidzba K., Hauser T.-K. et al. A “one size fit all” approach to language fMRT: increasing specificity and applicability by adding a self-paced component. *Exp Brain Res* 2016;234:673–84. DOI: 10.1007/s00221-015-4473-8.
8. Pape H.-C., Klinke R., Silbernagl S. et al. *Physiologie*. Seiten 960: Thieme Georg Verlag, 2005. Pp. 827–828. DOI: 10.1055/b-002-46974.
9. Stadt M. (Re-)organization of the developing human brain following periventricular white matter lesions. *Neurosci Bio Behav Rev* 2007;31(8):11506. DOI: 10.1016/j.neubiorev.2007.05.005.
10. Staudt M. Brain plasticity following early life brain injury: insights from neuroimaging. *Sein Perinatol* 2010;34(1):87–92. DOI: 10.1053/j.semperi.2009.10.009.
11. Staudt M. Reorganization after pre- and perinatal brain lesions. *J Anat* 2010;217(4):469–74. DOI: 10.1111/j.146987580.2010.01262.
12. Wilke M., Lidzba K., Staunt M. et al. Comprehensive language mapping in children, using functional magnetic resonance imaging: what is missing counts. *Neuroreport* 2005;16(9):915–9.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.
Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Информированное согласие. Родители пациентки подписали информированное согласие на публикацию ее данных.
Informed consent. There is given the parental informed consent to the publication of child’s data.

Статья поступила: 05.03.2017. **Принята к публикации:** 08.04.2019.
Article received: 05.03.2017. **Accepted for publication:** 08.04.2019.