

Коморбидность фетального алкогольного синдрома и синдром смешанного апноэ/гипопноэ сна у 7-летней девочки (клинический случай)

К.Д. Яковлева, О.В. Алексеева, Н.А. Шнайдер, Д.Р. Сидоренко, Д.В. Дмитренко

ФГБОУ ВО «Красноярский государственный медицинский университет им. проф. В.Ф. Войно-Ясенецкого» Минздрава России; Россия, 660022 Красноярск, ул. Партизана Железняка, 1

Контакты: Кристина Дмитриевна Яковлева Kris_995@mail.ru

Фетальный алкогольный синдром является результатом пренатального воздействия алкоголя на плод и проявляется нарушением нервно-психического развития и различными врожденными пороками развития, приводящими к коморбидным состояниям. Среди врожденных пороков развития при данной патологии описана и аденотонзиллярная патология. Сужение просвета носоглотки, челюстно-лицевые дисморфии и мышечная гипотония могут приводить к формированию синдрома апноэ сна. В статье представлен клинический случай фетального алкогольного синдрома и синдрома апноэ сна у девочки 7 лет с множественными врожденными пороками развития, рожденной от злоупотреблявшей алкоголем матери.

Нарушение дыхания во сне необходимо дифференцировать по характеру и причине возникновения. С целью диагностики респираторных нарушений проводится кардиореспираторный мониторинг, результаты которого определяют тактику ведения больного. Междисциплинарный подход к наблюдению и лечению ребенка с фетальным алкогольным синдромом необходим с целью повышения эффективности реабилитационных мероприятий и качества жизни пациента.

Ключевые слова: фетальный алкогольный синдром, врожденные пороки развития, дети, синдром апноэ сна, хронический аденоидит, аденотонзиллярная патология, кардиореспираторный мониторинг, клинический случай, междисциплинарный подход, коморбидность

Для цитирования: Яковлева К.Д., Алексеева О.В., Шнайдер Н.А. и др. Коморбидность фетального алкогольного синдрома и синдром смешанного апноэ/гипопноэ сна у 7-летней девочки (клинический случай). Русский журнал детской неврологии 2019;14(4):38–42.

DOI: 10.17650/2073-8803-2019-14-4-38-42



THE COMORBIDITY OF FETAL ALCOHOL SYNDROME AND SLEEP APNEA / HYPOPNEA SYNDROME IN A 7-YEAR-OLD GIRL (A CLINICAL CASE)

K. D. Yakovleva, O. V. Alekseeva, N. A. Shnayder, D. R. Sidorenko, D. V. Dmitrenko

Prof. V.F. Voyno-Yasenetskiy Krasnoyarsk State Medical University of the Ministry of Health of Russia; 1 Partizana Zheleznyaka St., Krasnoyarsk 660022, Russia

Fetal alcohol syndrome is the result of prenatal effect of alcohol on the fetus and manifests as disorders of neural and mental development and various congenital developmental disorders leading to comorbid diseases. Among congenital developmental disorders for the pathology, adenotonsillar pathology was described. Narrowing of the nasopharyngeal opening, faciomaxillary dysmorphias and muscle hypotony can lead to sleep apnea syndrome. The article presents a clinical case of fetal alcohol syndrome and sleep apnea in a 7-year-old girl with multiple developmental disorders born from alcohol-abusing mother.

Breathing abnormalities during sleep must be differentiated per character and cause. Cardiorespiratory monitoring is used to diagnose respiratory abnormalities, the results determine patient management tactics. Interdisciplinary approach to observation and treatment of a child with fetal alcohol syndrome is necessary to increase the effectiveness of rehabilitation measures and patient's quality of life.

Key words: fetal alcohol syndrome, congenital malformations, children, sleep apnea syndrome, chronic adenoiditis, adenotonsillar pathology, cardiorespiratory monitoring, clinical case, interdisciplinary approach, comorbidity

For citation: Yakovleva K.D., Alekseeva O.V., Shnayder N.A. et al. The comorbidity of fetal alcohol syndrome and sleep apnea/hypopnea syndrome in a 7-year-old girl (a clinical case). Russkiy zhurnal detskoy nevrologii = Russian Journal of Child Neurology 2019;14(4):38–42. (In Russ.).

Введение

Фетальный алкогольный синдром (ФАС) является результатом пренатального воздействия алкоголя на плод и проявляется нарушением нервно-психического развития и различными врожденными пороками

развития [12]. Согласно данным литературы за прошедшие 3 года доля беременных женщин, употребляющих алкоголь, увеличилась с 7,6 до 10,2 % [2]. Расстройства алкогольного спектра имеют пожизненные последствия и проявляются целым рядом различных

патологических состояний [7, 9]. Помимо формирования в рамках ФАС врожденных пороков развития головного мозга и сердца, для них характерно также развитие стигм дизэмбриогенеза, челюстно-лицевых дисморфий [1]. Наличие врожденных челюстно-лицевых дисморфий при ФАС, наряду с адено tonsиллярной патологией, может приводить к развитию синдрома апноэ сна у детей [2, 3]. В дошкольном и младшем школьном возрасте относительные размеры небных и глоточной миндалин в сравнении с дыхательными путями наибольшие, что может приводить к обструкции дыхательных путей [8]. По данным зарубежных авторов, частота встречаемости синдрома обструктивного апноэ/гипопноэ сна составляет 1–2 % [4, 11]. К развитию как обструктивного апноэ, так и центрального апноэ сна у детей (за счет предшествующих нарушений в эмбриональном периоде развития) с ФАС приводят мышечная гипотония и челюстно-лицевая дисморфия [5, 10, 13].

Представляем клинический случай сочетания ФАС и синдрома смешанного апноэ/гипопноэ сна у 7-летней девочки.

Клинический случай

Пациентка А.Ж., 7 лет. Впервые была проконсультирована неврологом в Неврологическом центре эпилептологии, нейрогенетики и исследования мозга Университетской клиники ФГБОУ ВО «Красноярский государственный медицинский университет им. проф. В.Ф. Войно-Ясенецкого» Минздрава России (далее — НЦ УК) в январе 2017 г. в возрасте 7 лет. Бабушка ребенка обратилась с жалобами на задержку развития речи у девочки, снижение памяти, трудности концентрации внимания и усвоения новой информации, медленное выполнение заданий в детском саду по сравнению со сверстниками, трудности контроля за своими эмоциями, стереотипные движения с подбегом рук и перебиранием пальцев кистей, приступы «закатывания» на высоте плача с задержкой дыхания, обмяканием и падением, раскачивание в положениях сидя и лежа (в том числе в течение длительного времени перед засыпанием), увеличение продолжительности засыпания в вечернее время до 1 ч с повторным раскачиванием.

Из анамнеза известно, что пациентка — 3-й ребенок у матери, родилась от 3-й незапланированной беременности, протекавшей на фоне хронического злоупотребления алкоголем до зачатия ребенка, на период зачатия и во время всего срока беременности. Во время вынашивания беременности женщина на учете у акушера-гинеколога не состояла, вела асоциальный образ жизни. Роды преждевременные, на сроке гестации 36 нед. При рождении диагностированы врожденная гипотрофия плода II степени, врожденная белково-энергетическая недостаточность. Со слов бабушки, самостоятельная ходьба у девочки появилась с 1 года 3 мес.

В пищевом рационе ребенка преобладали хлебобулочные изделия, отмечался выраженный дефицит массы тела. Выявлялись аутистические черты поведения с отказом от ласки, стереотипиями, задержкой речевого развития. В возрасте 1 года ребенок был взят на воспитание бабушкой и бабушкой (по материнской линии).

Объективный статус: состояние ребенка удовлетворительное. Девочка в сознании. Ориентация в месте, времени и собственной личности сохранена. Умеренно повышен уровень ситуативной тревожности, но сопротивления осмотру врача девочка не оказывает, глазной контакт сохранен, немногословна, фразовая речь сформирована. Масса тела 14,5 кг при росте 114 см, индекс массы тела 11,16 кг/м². Астенический тип телосложения. Гиперэластоз кожи и подкожной клетчатки, межпальцевый птеригиум, наиболее выраженный на левой кисти, кожная частичная синдактилия II–III пальцев обеих стоп. Алкогольная челюстно-лицевая дисморфия (короткие и узкие глазные щели, широкая плоская переносица, сглаженный губной желобок, тонкая верхняя губа (кайма верхней губы, «готическое» небо), неглубокая микроцефалия, эпикантус, гипогнатия, микрогнатия. Диффузная мышечная гипотония. Дисплазия костей левой голени с укорочением ноги на 1 см, прихрамывание при ходьбе (рис. 1).



Рис. 1. Пациентка А.Ж., 7 лет. Внешний вид ребенка, стигмы дизэмбриогенеза

Fig. 1. Female patient A. Zh., 7 years old. Appearance of the child, dysembryogenic stigmas

Неврологический статус: черепно-мозговые нервы: гипотония мягкого нёба; дисфония, дизартрия; нарушения глотания нет. Мышечный тонус негрубо диффузно снижен, физиологические рефлексы умеренные, патологических рефлексов не выявлено, парезов нет. Координаторные пробы выполняет удовлетворительно. Расстройств чувствительности не выявлено. Тазовых нарушений нет.

После осмотра неврологом НЦ УК девочка была направлена на консультацию оториноларинголога НЦ УК для верификации фоновой патологии лор-органов и согласования дальнейшей тактики ведения пациентки.

Жалобы со стороны лор-органов (со слов бабушки) на гнусавость голоса, регулярную заложенность носа с обильным слизистым отделяемым, храп во время ночного сна, беспокойный непродолжительный сон. **Лор-статус:** дыхание через нос на момент осмотра умеренно затруднено. Носовая перегородка умеренно искривлена влево. Слизистая оболочка носа умеренно гиперемирована, истончена. Нижние носовые раковины гипертрофированы. При эндоскопическом исследовании — обтурация аденоидной тканью на 2/3. Наружный слуховой проход AS, AD узкий, свободный. Реакция на звук живая,

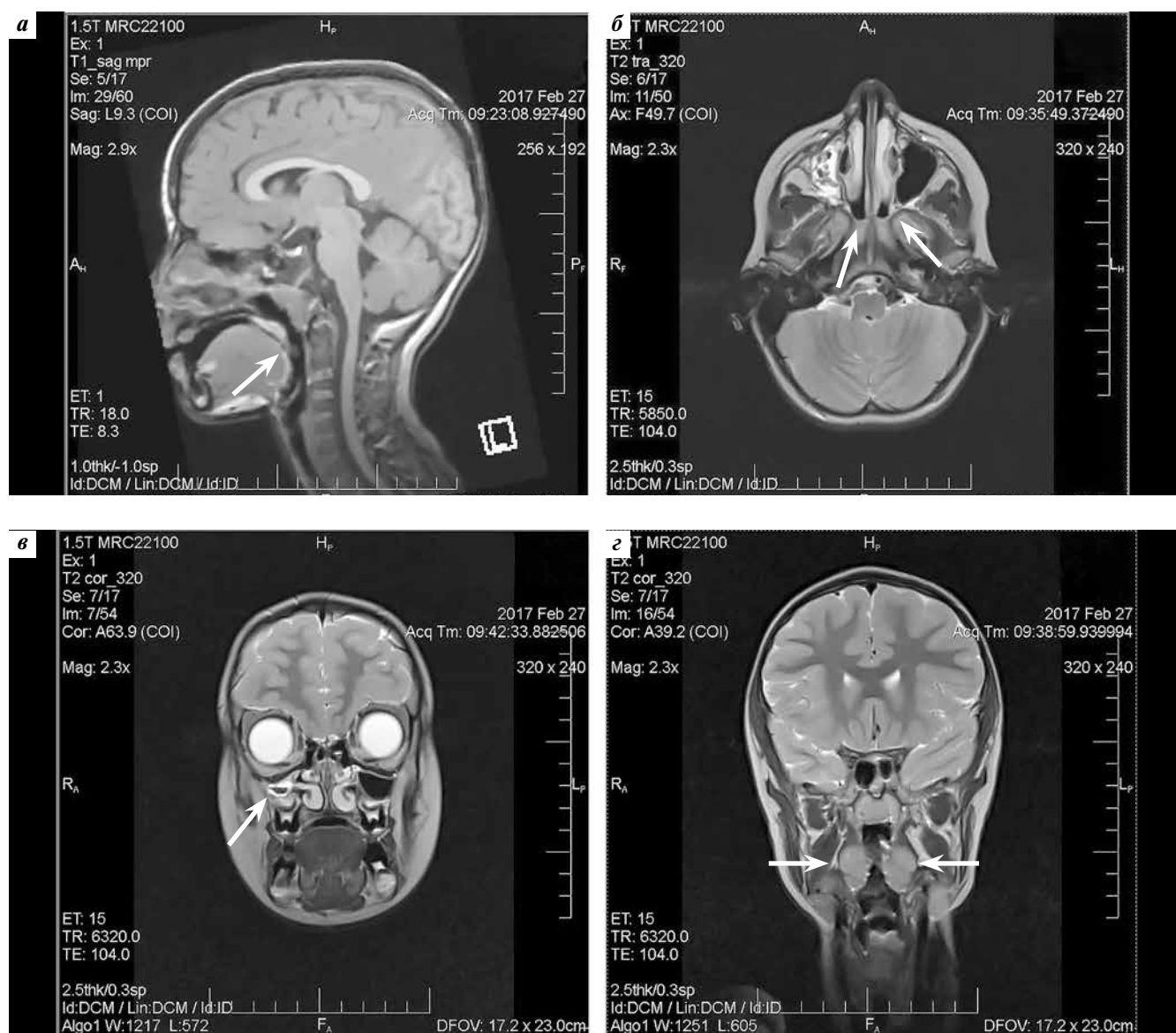


Рис. 2. Пациентка А.Ж., 7 лет. Магнитно-резонансная томография головного мозга: а — сагиттальная проекция. Гипертрофия глоточной миндалины II степени (указана стрелкой); б — аксиальная проекция. Симметричная гипертрофия нижних носовых раковин (указана стрелками); в, г — коронарная проекция. Гипертрофия нёбных миндалин II степени, гипоплазия верхнечелюстной пазухи справа (указаны стрелками)

Fig. 2. Female patient A. Zh., 7 years old. Magnetic resonance imaging of the brain: а — sagittal projection. Grade II hypertrophy of the pharyngeal tonsil (arrow); б — axial projection. Symmetrical hypertrophy of the inferior nasal concha (arrows); в, г — coronary projection. Grade II hypertrophy of the palatal tonsils, hypoplasia of the maxillary sinus on the right (arrows)

выполняет просьбы врача. Рот при дыхании приоткрыт. Язык влажный, умеренно обложен белым тонким налетом. «Готическое» нёбо. Запах изо рта. Слизистая оболочка полости рта розовая, чистая. Слизистая оболочка задней стенки глотки розовая, чистая, стекание слизи по задней стенке глотки. Нёбные миндалины: гипертрофия I степени, лакуны чистые, рыхлые, увеличенные, без видимого казеозного детрита. Голос назализован.

Совместно неврологом и оториноларингологом НЦ УК был определен план дополнительного обследования.

Магнитно-резонансная томография головного мозга (1,5 Т): мелкие очаговые изменения в веществе головного мозга дистрофического характера, асимметрия гиппокампов без видимых структурных изменений, незначительная асимметрия боковых желудочков. Подозрение на фокальную кортикальную дисплазию в передних базальных отделах левой лобной доли. Гипоплазия правой верхнечелюстной пазухи, гипертрофия глоточной миндалины II степени, гипертрофия нижних носовых раковин, гипертрофия нижних полюсов нёбных миндалин, сужающих просвет гортани (рис. 2).

Электроэнцефалография: базовый ритм в пределах возрастной нормы, интериктальная и иктальная эпиплеформная активность не зарегистрирована.

Кардиореспираторный мониторинг: индекс апноэ/гипопноэ 2,1/ч. Храп регистрировался не более 5 % времени. Зарегистрировано 16 эпизодов дыхательных нарушений: 3 эпизода обструктивного апноэ максимальной продолжительностью до 22 с, 2 эпизода центрального апноэ максимальной продолжительностью до 41 с, 11 эпизодов

гипопноэ максимальной продолжительностью до 32 с. Минимальный уровень сатурации 76 %. Средний уровень сатурации 98 %. Индекс десатурации 1,1/ч.

Электрокардиография: синусовый ритм, средняя частота сердечных сокращений 68 уд/мин, регистрировались эпизоды синусовой аритмии с минимальной частотой сердечных сокращений 48 уд/мин и максимальной частотой 108 уд/мин.

Заключение: синдром смешанного апноэ/гипопноэ легкой степени тяжести. Ночная гипоксемия тяжелой степени. Синусовая аритмия на фоне респираторных событий (рис. 3).

Таким образом, у ребенка имеют место множественные нарушения со стороны органов и систем, обусловленные ФАС, с поражением нервной системы: нарушения в эмоционально-волевой сфере, аффективно-респираторные приступы, стереотипии, задержка речевого и психического развития, снижение памяти, дефицит внимания, нарушение обучаемости; костно-суставной системы: врожденный челюстно-лицевой дисморфизм, гипоплазия верхнечелюстной пазухи справа, гипертрофия нижних носовых раковин, врожденная гипоплазия костей левой голени с укорочением нижней конечности слева на 1 см, плоскостопие.

Кроме того, у пациентки регистрируется сопутствующая патология со стороны лор-органов: гипертрофия глоточной миндалины II степени, гипертрофия нёбных миндалин I–II степени, а также метаболические нарушения в миокарде и белково-энергетическая недостаточность I степени.

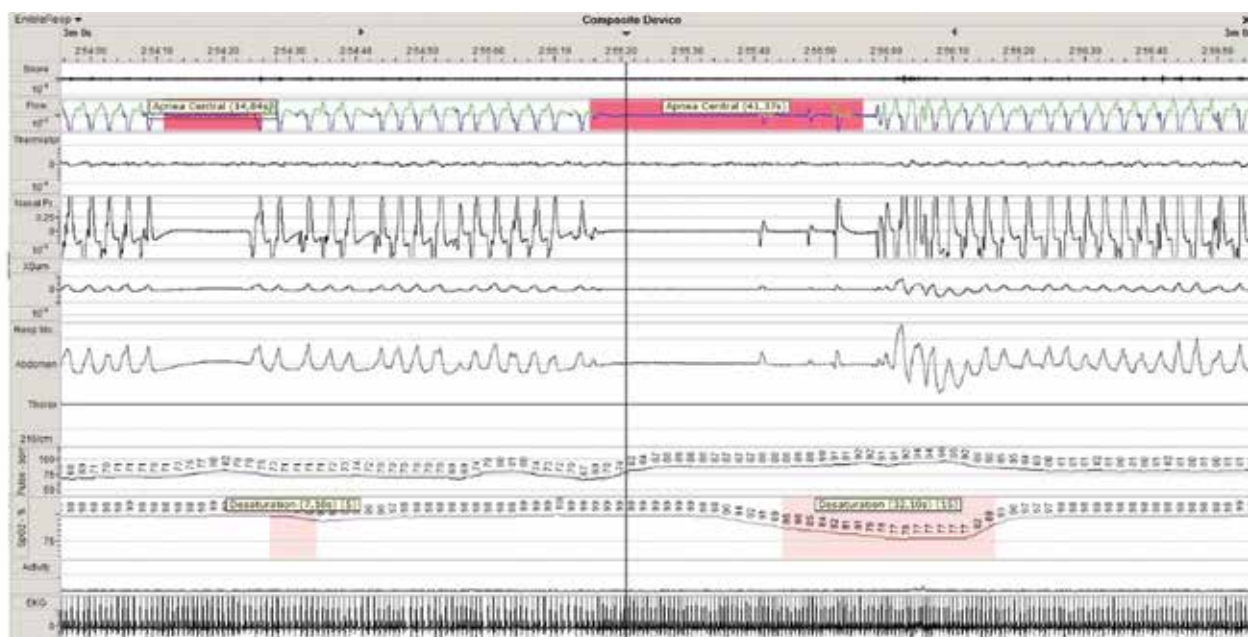


Рис. 3. Пациентка А. Ж., 7 лет. Паттерн кардиореспираторного мониторинга с использованием диагностического оборудования Embla ResMed (Австралия): красным цветом выделена зона центрального апноэ длительностью до 40 с, розовым — зона десатурации длительностью до 30 с
Fig. 3. Female patient A. Zh., 7 years old. Pattern of cardiorespiratory monitoring using Embla ResMed diagnostic equipment (Australia): red shows the area of central apnea lasting 40 seconds, pink shows the area of desaturation lasting 30 seconds

Осложнение: синдром смешанного апноэ/гипопноэ сна.

Принимая во внимание данные клинического неврологического и оториноларингологического осмотра, эндоскопического осмотра лор-органов, результаты объективных методов исследования, в рамках консилума принято совместное решение оториноларинголога

и невролога о плановом оперативном лечении в объеме холодно-плазменной аденотомии под общей анестезией.

Представленный клинический случай демонстрирует значимость междисциплинарного подхода к ведению ребенка с ФАС в обеспечении повышения эффективности реабилитационных мероприятий и улучшения качества жизни пациента.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Бахшиева С., Зорина Е., Мудрова Л. и др. Критерии фетального алкогольного синдрома и предупреждение нарушений развития детей. Врач 2015;(1):58–9. [Bakhshieva S., Zorina E., Mudrova L. et al. Criteria of fetal alcohol syndrome and prevention of developmental disorders in children. Vrach = Doctor 2015;(1):58–9. (In Russ.)].
2. Сидоренко Д.Р., Терскова Н.В., Шнайдер Н.А. Выбор тактики ведения ребенка с хроническим аденоидитом, осложненным синдромом обструктивного апноэ/гипопноэ сна: клинический случай. Вестник клинической больницы 2016;7(2):48–51. [Sidorenko D.R., Terskova N.V., Shnayder N.A. Choice of tactics of reference of the child with chronic adenoiditis complicated by obstructive sleep apnea/hypopnea: clinical case. Vestnik klinicheskoy bolnitsi = Clinical Hospital Bulletin 2016;7(2):48–51. (In Russ.)].
3. Терскова Н.В. Хронический аденоидит. Сибирское медицинское обозрение 2015;(94):85–92. [Terskova N.V. Chronic adenoiditis. Sibirskoe meditsinskoe obozrenie = Siberian Medical Review 2015;(94):85–92. (In Russ.)].
4. Aubertin G., Beydon N. Obstructive sleep apnea syndrome in children. Rev Pneumol Clin 2013;69(4):229–36. DOI: 10.1016/j.pneumo.2013.05.004.
5. Bozzini M.F., Di Francesco R.C. Managing obstructive sleep apnoea in children: the role of craniofacial morphology. Clinics (Sao Paulo) 2016;71(11):664–6. DOI: 10.6061/clinics/2016(11)08.
6. Denny L., Coles S., Blitz R. Fetal alcohol syndrome and fetal alcohol spectrum disorders. Am Fam Physician 2017;96(8):515–22.
7. Dörrie N., Föcker M., Freunschit I. et al. Fetal alcohol spectrum disorders. Eur Child Adolesc Psychiatry 2014;23(10):863–75. DOI: 10.1007/s00787-014-0571-6.
8. Esteller E. Obstructive sleep apnea-hypopnea syndrome in children: Beyond adenotonsillar hypertrophy. Acta Otorrinolaringol Esp 2015;66(2):111–9. DOI: 10.1016/j.otorri.2014.05.001.
9. Feldman H.S., Jones K.L., Lindsay S. et al. Prenatal alcohol exposure patterns and alcohol-related birth defects and growth deficiencies: a prospective study. Alcohol Clin Exp Res 2012;36(4):670–6. DOI: 10.1111/j.1530-0277.2011.01664.x.
10. Felix O., Amadeo A., Olmo Arroyo J. et al. Central sleep apnea in children: experience at a single center. Sleep Med 2016;25:24–8. DOI: 10.1016/j.sleep.2016.07.016.
11. Joosten K.F., Larramona H., Miano S. et al. How do we recognize the child with OSAS? Pediatr Pulmonol 2017;52(2):260–71. DOI: 10.1002/ppul.23639.
12. Landgraf M., Nothacker M., Heinen F. Diagnosis of fetal alcohol syndrome (FAS): German guideline version 2013. Eur J Paediatr Neurol 2013;17(5):437–46. DOI: 10.1016/j.ejpn.2013.03.008.
13. Qiu Z.H., Wu Y.X., Yan H.C. et al. Prevalence of central sleep apnea in different age groups of children with sleep apnea-hypopnea. Zhonghua Yi Xue Za Zhi 2013;93(6):419–21.

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.