

PERZISTUJÍCÍ PRIMITIVNÍ TRIGEMINÁLNÍ TEPNA

PERSISTENT PRIMITIVE TRIGEMINAL ARTERY

kazuistika

Jiří Jandura¹
Pavel Ryška¹
Antonín Krajina¹
Ondřej Slezák¹
Ivana Krátká¹
Jiří Kuchyňka²

¹Radiologická klinika LF UK a FN,
Hradec Králové

²Neurologická klinika LF UK a FN,
Hradec Králové

Přijato: 30. 3. 2017.

Korespondenční adresa:

MUDr. Jiří Jandura
Radiologická klinika FN
Sokolská 581
500 05 Hradec Králové 5
e-mail: jiri.jandura@fnhk.cz

Konflikt zájmů: žádný.

Hlavní stanovisko práce

Perzistující primitivní trigeminální tepna je vzácnou vývojovou cévní varietou, jejíž nález však může mít závažné klinické konsekvence.

SOUHRN

Jandura J, Ryška P, Krajina A, Slezák O, Krátká I, Kuchyňka J. Perzistující primitivní trigeminální tepna

Perzistující primitivní trigeminální tepna patří ke vzácným vývojovým varietám intrakraniálního cévního systému. Můžeme se s ní setkat při vyšetření mozku či mozkové cirkulace výpočetní tomografií (CT), magnetickou rezonancí (MR), nebo během angiografického zobrazení intrakraniálního tepenného řečiště. Předkládáme kazuistiku 18leté ženy, u které byla tato cévní struktura identifikována při MR zobrazení mozku. Přítomnost perzistující primitivní trigeminální tepny obvykle není zdrojem klinických obtíží pacienta. Na druhou stranu jsou v literatuře dokumentovány případy souvislosti s neurologickými obtížemi, např. s neuralgií trigeminu. Je také často zmiňována koincidence této tepny s dalšími cévními anomáliemi. Přítomnost perzistující primitivní trigeminální tepny nabývá zásadního významu v případě plánování operačního výkonu v oblasti tureckého sedla a může také hrát roli u cévních mozkových příhod.

Klíčová slova: mozkové tepny, embryologie, neuralgie trigeminu, magnetická rezonance.

Major statement

Persistent primitive trigeminal artery is a rare developmental arterial variant with possible severe clinical impact.

SUMMARY

Jandura J, Ryška P, Krajina A, Slezák O, Krátká I, Kuchyňka J. Persistent primitive trigeminal artery

Persistent primitive trigeminal artery belongs to the group of rare developmental intracranial vascular anomalies. This structure can be encountered at computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) or at angiographic studies of brain vessels. We report the case of an 18-year old woman in whom this artery was detected at MRI of the brain.

Persistent primitive trigeminal artery is usually asymptomatic. However, it can cause neurologic symptoms, such as tic douloureux, according to literature. There is also reported concomitant occurrence of persistent trigeminal artery together with other vascular anomalies. Persistent trigeminal artery has a vital importance in surgery planning near the region of sella. It could be also considered significant in the case of stroke.

Key words: cerebral arteries, embryology, trigeminal neuralgia, magnetic resonance imaging.

ÚVOD

Během embryonálního stadia existuje řada cévních struktur, které vývojově zanikají, či se transformují v jiné. Jedním z příkladů narušení tohoto přirozeného procesu jsou perzistující fetální tepenné anastomózy mezi vnitřní karotickou tepnou (ACI) a vertebrobasilárním povodím. Do této skupiny patří perzistující primitivní trigeminální tepna (PPTA), otická, hypoglosální a proatlantální intersegmentální tepna (1, 2). Výskyt jmenovaných cévních struktur je vzácný, udává se v rozmezí přibližně 0,1–1 % (3, 4). PPTA se z nich vyskytuje nejčastěji. Je také největší, s lokalizací nejvíce distálně a ventrálně (1, 3, 5–8). Název tepny je odvozen od blízkosti trigeminálního ganglia (1). Poprvé byl nález PPTA popsán Quainem v pitevním zprávě v roce 1844, z angiografického zobrazení ji jako první zaznamenal Sutton v roce 1950 (3, 9). PPTA obvykle spojuje proximální část kavernózního segmentu ACI se střední nebo distální částí basilární tepny (BA) (3, 9). Salasova klasifikace rozeznává dva typy PPTA podle jejího průběhu – laterální (petrózní) a mediální (sfenoidální) (1, 2, 5, 7, 9, 10). Klasifikace dle Saltzmana se využívá při hodnocení angiografických nálezů (3, 5, 9). Spojitost mezi nálezem PPTA a jinými cévními anomáliemi se odhaduje až v 25 % případů (5). Přítomnost PPTA je také dáována do souvislosti s neurologickou symptomatikou, např. neuralgií trigeminu (6, 9). Informace o přítomnosti PPTA v mediální lokalizaci (zejména intraselárně) je zásadní u pacientů, kteří mají podstoupit chirurgický zákrok v této oblasti, vzhledem k riziku iatrogenního poranění tepny (2, 5, 8).

KAZUISTIKA

Žena, 18 let, byla krátkodobě hospitalizována na Neurologické klinice Fakultní nemocnice v Hradci Králové pro vyšetření jejích obtíží se spánkem. Ty u ní začaly asi před 3 roky, od doby, co nastoupila na střední školu. Současně nemocná udávala občasně bolesti hlavy, bez jasné lokalizace a ranní bolesti zad. Byla upozorněna sestrou, že má některé dny k večeru širší zornici na jedné straně. Před 2 lety u ní došlo k mírnému poleptání levého oka, před 5 lety prodělala komoci mozku. Při fyzikálním vyšetření byl zjištěn intenční tremor horních končetin a svalová dysbalance paravertebrálně, s místem palpačně bolestivého hypertonu v musculus trapezius vpravo. Dále byla pozorována hyperhydróza dlaní a plosek nohou. Zornice byly při fyzikálním vyšetření bez nápadností. Základní biochemické vyšetření bylo s normálním nálezem. V závěru polysomnografického vyšetření byla konstatována prodloužená latence usnutí a porucha makrostruktury spánku. Při psychologickém vyšetření byla uvedena možná souvislost poruch spánku se situačními faktory a dále s osobnostními rysy nemocné, byla také zjištěna automutilace a suicidální tendence.

Bylo indikováno MR zobrazení mozku, s cílem vyloučit strukturální a ložiskové změny v nitrolebí. To bylo provedeno na 3T přístroji Siemens Skyra (Siemens Healthcare, Erlangen, Německo). Standardní MR vyšetřovací protokol mozku (sekvence T2 a FLAIR axiálně, T1 sagitálně, T2 koronálně, sekvence DWI a SWI axiálně) byl doplněn o angiografické zobrazení (TOF MRA, včetně 3D rekonstrukcí) a zobrazení tenkými vrstvami v úrovni basilární tepny (T2 space axiálně – ZOOMit). Dále byly zhotoveny VRT rekonstrukce ob-

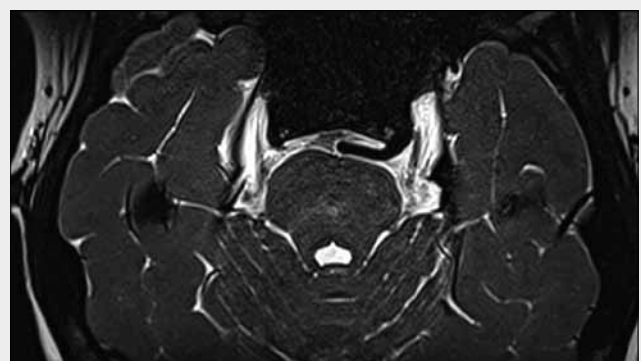


▲ Obr. 1

Obr. 1. T2 obraz axiálně – atypická cévní struktura odpovídající perzistující primitivní trigeminální tepně (PPTA) v oblasti prepontinní cisterny vlevo

Fig. 1. T2W axial – abnormal blood vessel corresponding to the primitive persistent trigeminal artery (PPTA) is localized in the left part of preponine cistern

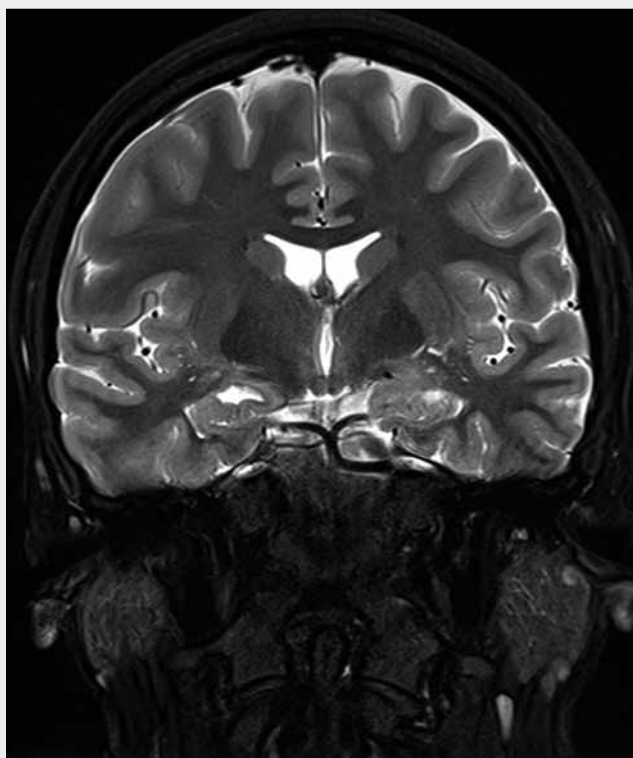
razu na pracovní stanici systému Philips Allura Clarity Xper FP 20/20 (Philips Medical System, Best, Nizozemsko). Již na úvodní T2 vážené sekvenci v axiální rovině (obr. 1) se v oblasti prepontinní cisterny vlevo zobrazila atypická, přibližně 3–4 mm široká a 20 mm dlouhá tepenná struktura, která směřovala laterálně doleva k levostrannému nervus trigeminus, podél kterého probíhala medioventrálně a navazovala na proximální část kavernózního úseku ACI vlevo (obr. 2, 3, 4, 5 a 6).



▲ Obr. 2

Obr. 2. T2 obraz axiálně – detailnější zobrazení PPTA na cílené volumetrické sekvenci s tenkými vrstvami (T2 space – ZOOMit)

Fig. 2. T2W axial – PPTA in detail on volumetric sequence (T2 space – ZOOMit)



▲ Obr. 3

Obr. 3. T2 obraz koronálně – zobrazení komunikace vnitřní karotické tepny vlevo se středním úsekem bazilární tepny přes PPTA v koronální rovině

Fig. 3. T2W coronal – anastomosis of the internal carotid artery with the middle section of basilar artery via PPTA



▲ Obr. 4

Obr. 4. 3D TOF MRA axiálně – zobrazení průběhu a komunikace PPTA
Fig. 4. 3D TOF MRA axial – course and anastomosis of PPTA



▲ Obr. 5A

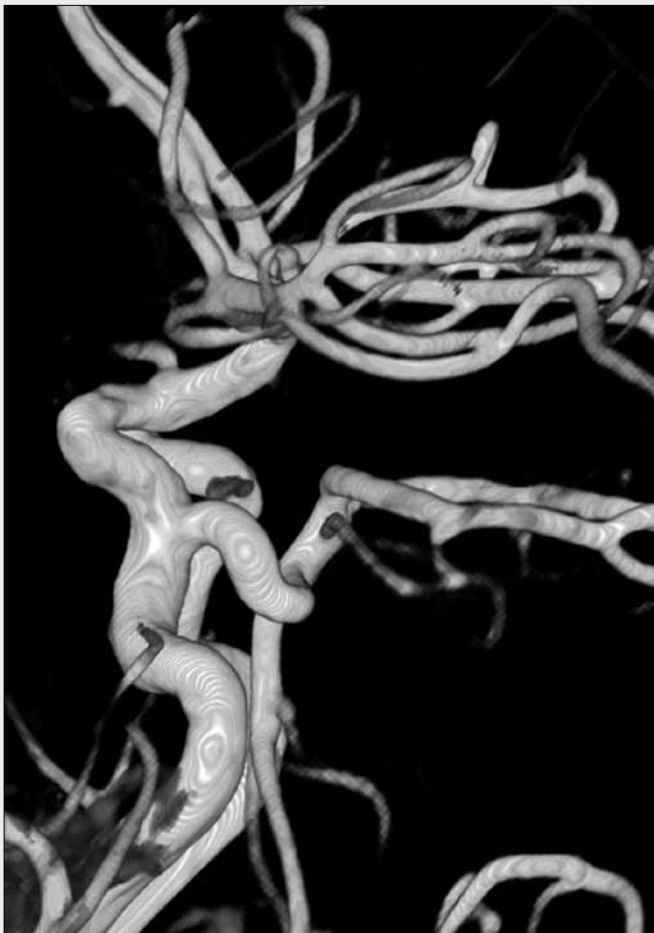


▲ Obr. 5B

Obr. 5. MIP rekonstrukce TOF MRA – celkový pohled na tepny mozku v axiální rovině (A) a koronální rovině (B)

Fig. 5. TOF MRA (MIP reconstruction) – panoramic views on brain arteries at axial plane (A) and coronal plane (B)

Proximální konec této atypické tepny byl napojen na střední třetinu BA, mezi odstupy horních mozečkových tepen (SCA) a předních dolních mozečkových tepen (AICA) (obr. 5b, 6). Nebyly zjištěny jasné tlakové projevy na nervus trigeminus. Ventrální kontura Varolova mostu vlevo byla mírně odtlačena dorzálně, jinak ale bez průkazu patologických změn (obr. 1, 2, 4). BA vykazovala určitý rozdíl v šíři lumen v úseku nad anastomózou a pod ní, přičemž v proximálním úseku měla mírně menší průměr (obr. 5b, 6b). Obě SCA a AICA odstupovaly v anatomické lokalizaci, jejich šíře byla přiměřená a přibližně symetrická (obr. 3, 5b). Na TOF MRA zobrazení nebyly jasně patrné zadní komunikující tepny (ACoP), pravděpodobně pro



▲ Obr. 6A



▲ Obr. 6B

Obr. 6. VRT rekonstrukce obrazu – pohled na PPTA v sagitální rovině (A) a šikmé rovině (B)
 Fig. 6. Volume rendering technique – images of PPTA at sagittal plane (A) and oblique plane (B)

jejich výraznou hypoplazii. Uvedená atypická cévní struktura byla identifikována jako PPTA. V nitrolebí nebyly zjištěny další významné změny na konfiguraci cévního systému, ani aneurysmata mozkových tepen. Ostatní nález na mozku byl bez nápadností. Etmoidální sklípky vykazovaly nevýznamné mírné zesílení sliznice.

Na základě provedených klinických i paraklinických vyšetření, které neprokázaly organickou příčinu poruch spánku, byla nemocná z hospitalizace propuštěna, s předáním do péče praktického lékaře a doporučením návštěvy psychoterapeuta.

DISKUSE

Zobrazení PPTA

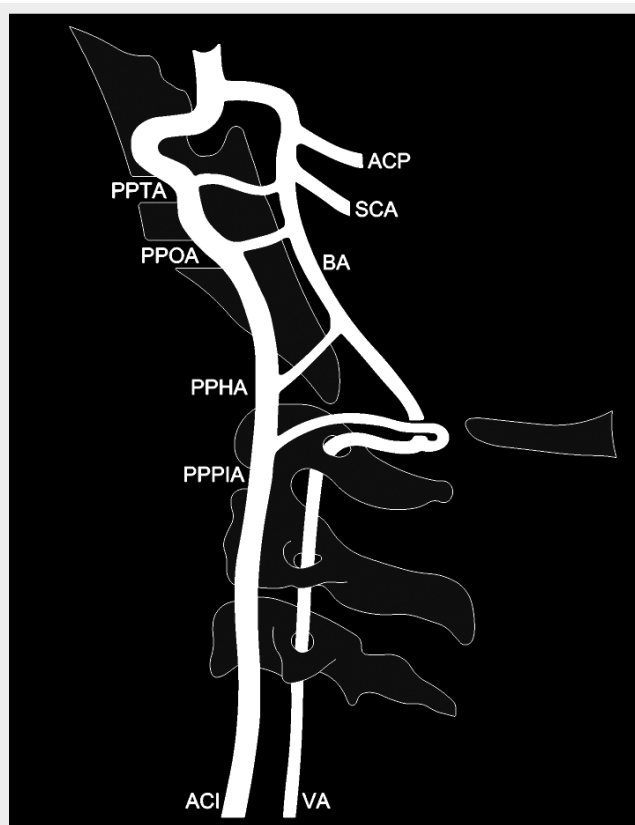
V souvislosti s rozvojem techniky zobrazovacích metod a rostoucího počtu diagnostických zobrazení, jsou nálezy perzistujících karotido-vertebrobazilárních anastomóz stále častější. MR zobrazení umožňuje dobře detekovat tyto tepenné varianty za pomoci TOF MRA a volumetrických zobrazení, tedy zcela neinvazivně (7). MRA však má určité limitace v hodno-

cení průběhu cévních struktur v blízkosti báze lební. V těchto případech může být nápomocná CTA, vzhledem k jejímu lepšímu prostorovému rozlišení (4–6, 10). Zlatým standardem zobrazení je digitální subtrakční angiografie (5). V našem případě bylo možné identifikovat přítomnost PPTA již na základních MR sekvencích, nicméně ke stanovení průběhu tepny a vztahu k okolním strukturám se jevílo potřebné doplnění MRA a sekvence zobrazení v tenkých vrstvách.

Embryogeneze PPTA

Příčina přetrvávání primitivních tepen není zcela jasná. Uvažuje se, že vývoj mozkových tepen není řízen rigidním genetickým programem a rozhodující bývá momentální potřeba cévního zásobení nervových struktur (3, 9).

V době, kdy embryo dosahuje velikosti 4 mm, je tvořící se prosencephalon zásobován karotickým systémem a rhombencephalon systémem longitudinálních neurálních tepen (LNA). Uvedené tepenné systémy jsou v této době propojeny přes tři párové presegmentální anastomózy, které jsou pojmenované podle přilehlých anatomických struktur (tepna trigeminální, otická a hypoglosální). Dále je přítomna intersegmentální anastomóza – tepna proatlantální (obr. 7) (11).



▲ Obr. 7

Obr. 7. Schematické znázornění čtyř perzistujících fetálních karotido-vertebrobazilárních anastomóz; náčrt podle [Angiografie – Krajina, Hlava (11)]

PPTA – perzistující primitivní trigeminální tepna, PPOA – perzistující primitivní otická tepna, PPHA – perzistující primitivní hypoglosální tepna, PPPIA – perzistující primitivní proatlantální intersegmentální tepna, ACI – vnitřní karotická tepna, VA – vertebrální tepna, BA – bazilární tepna, SCA – horní mozečková tepna, ACP – zadní mozková tepna

Fig. 7. Schematic picture of fetal carotid-vertebrobasilar anastomoses; according to [Angiografie – Krajina, Hlava (11)]

PPTA – persistent primitive trigeminal artery, PPOA – persistent primitive otic artery, PPHA – persistent primitive hypoglossal artery, PPPIA – persistent primitive proatlantal intersegmental artery, ACI – internal carotid artery, VA – vertebral artery, BA – basilar artery, SCA – superior cerebellar artery, ACP – posterior cerebral artery

Jakmile embryo dosáhne velikosti 6 mm, vzniká anastomóza mezi distální ACI a odpovídající LNA, ze které se stává arteria communicans posterior (ACoP). Následně presegmentální tepny i proatlantální tepna regredují a jsou obliterovány. PPTA z nich zaniká jako poslední. Selhání tohoto procesu vede k přetrvávání uvedených anastomóz (1–6).

Existují též varianty perzistující trigeminální tepny (PPTAV), které obdobně jako PPTA odstupují z ACI, ale nejsou napojeny na BA a pokračují jako mozečkové tepny, nejčastěji AICA, dále jako PICA a SCA. BA v tomto případě obvykle nebývá hypoplastická (3, 5, 9, 12). PPTAV mají obvykle úzký průřez, což činí jejich vizualizaci a rozpoznání obtížné. Uváděná četnost PPTAV na konvenční angiografii je 0,18 % a na MRA 0,76 % (5). PPTAV jsou obvykle náhodným nálezem, ale mohou být spojeny s přítomností aneurysmat či jiných patologických cévních nálezů, mohou být také zodpovědné za ischemické změny v zadní jámě lebni a trigeminální neuralgie (5, 12).

Klasifikace PPTA

Klasifikace podle Salase rozděluje PPTA na laterální a mediální typ na základě její polohy vzhledem k nervus abducens. PPTA laterálního typu probíhá paraselárně, v blízkosti nervus trigeminus. PPTA mediálního typu má intraselární, nebo transhypofyzeální průběh a penetruje dorzum tureckého sedla, průběh tepny může vést ke kompresi hypofýzy (1, 3, 5, 9). Klasifikace podle Saltzmana se využívá k hodnocení angiografických nálezů. U typu Saltzman 1 se PPTA napojuje na BA mezi SCA a AICA, přičemž BA proximálně od junkce je obvykle hypoplastická a ACoP buď chybí, nebo jsou hypoplastické. PPTA tak zásobuje obě ACP a SCA. U typu Saltzman 2 se PPTA také napojuje na BA mezi SCA a AICA, avšak ACoP jsou vytvořeny a zásobují ACP. Typ Saltzman 3 odpovídá PPTAV (3, 5, 6, 9). V našem případě tedy zobrazená PPTA odpovídala laterální variantě dle Salase a typu 1 dle Saltzmana.

Četnost PPTA

Uchino et al. zjišťovali četnost anomálních větví ACI u pacientů se zobrazením TOF MRA. Jejich soubor čítal přibližně 900 osob. Autoři uváděli nález PPTA v pěti případech (3krát laterální varianta a 2krát mediální varianta), nález PPTAV v pěti případech a nález perzistující hypoglosální tepny (PPHA) v jednom případě (7).

Zampakis et al. v retrospektivní studii hodnotili přínos CT angiografie v detekci intrakraniálních tepenných anatomických variant. V souboru 1739 pacientů vyšetřených v časovém rozmezí více než 9 let našli PPTA (typ 2 dle Saltzmana) u jednoho pacienta (0,057 % případů), stejně častý byl i nález PPHA, proatlantální intersegmentální tepna byla nalezena ve dvou případech (0,115 %) (4).

Rhee et al. retrospektivně hodnotili 1250 konvenčních mozkových angiogramů a 2947 MRA mozkových tepen s cílem nalézt PPTAV. Celkem bylo nalezeno pět pacientů s PPTAV. U dvou osob byly jejich terminálními větvemi AICA i SCA, u ostatních byla PPTAV zakončena jako AICA. Autoři uvádějí nález těchto přidružených cévních anomálií: stenóza ACM, aneurysma ACoP, fenestrace proximálního úseku ACA vlevo a okluze ACI spojená se stenózou ACA a ACM (12). Uváděná četnost typů PPTA dle Saltzmana se uvádí 24 % – typ 1, 16 % – typ 2 a 60 % – typ 3 (PPTAV) (3, 9).

Klinický význam PPTA

Nález PPTA je obvykle incidentální. Je však uváděna koincidence PPTA s různými patologiemi cévního systému a také s neurologickými obtížemi. Mezi přidružené patologické změny cév se řadí aneurysmata mozkových tepen, v literatuře se uvádí jejich četnost v širokém rozmezí 3–32 % (9). Mezi další patologické cévní nálezy jsou uváděny například agenze karotických nebo vertebrálních tepen, abnormality tepen oblouku aorty, obličejové hemangiomy, karotido-kavernózní píštěle, arteriovenózní malformace, onemocnění moyo-moya (1, 2, 3, 6, 10). Přítomnost PPTA může hrát roli při ischemických cévních mozkových příhodách v zadní cirkulaci, jsou popsány případy vertebrobazilární insuficience a ischemie mozkového kmene (3, 9). Je také třeba zmínit možnost využití PPTA jako alternativního endovaskulárního přístupu do zadní cirkulace, zejména při redukováné průchodnosti BA (3, 9).

Případy komprese trigeminálního nervu PPTA, či PPTAV jsou vzácné. V literatuře uváděná prevalence trigeminální neuralgie u pacientů s přítomností PPTA je 0,1–2,2 % (10). Conforti et al. popsali případ pacientky s neuralgií trigeminu, nestabilní arteriální hypertenzi a přítomnou PPTA, kdy medikamentózní úpravou hodnoty krevního tlaku došlo k redukci neuralgie (2). Neuralgie trigeminu způsobená kolizí s PPTA, či PPTAV může být řešitelná pomocí neurochirurgické mikrovaskulární dekomprese (10). Některé případy paréz okohybných nervů se dávají do souvislosti blízkého vztahu PPTA k nervus oculomotorius, trochlearis a abducens (2, 9). V našem případě by tedy mohla být souvislost nálezů PPTA s anamnesticky udávanou asymetrií zornic u pacientky.

Důležitou konsekvencí nálezů PPTA i PPTAV je plánování chirurgického výkonu v oblasti intra- či paraselární a při zá-

krocích v oblasti ganglion Gasseri, kdy může dojít k poranění těchto cév (5, 8–10, 12).

ZÁVĚR

Perzistující primitivní trigeminální tepna ze skupiny perzistujících fetálních karotido-vertebrobazilárních anastomóz je vzácným nálezem, se kterým se můžeme setkat i na klasických sekvencích MR zobrazení mozku. Většinou se jedná o nález bez klinického významu. Na druhou stranu může být tato struktura příčinou neuralgií trigeminu, či narušovat funkci okohybných nervů. Současně je nutné pátrat po jiných změnách na cévním systému. Perzistující primitivní trigeminální tepna může být potenciálním zdrojem krvácení při operaci v oblasti tureckého sedla, či ganglion Gasseri.

LITERATURA

1. **Russo AM, Sienna MC.** Persistent trigeminal artery: case report. *Int J Anat Var* 2011; 4: 157–160.
2. **Conforti R, Parlato RS, De Paulis D, et al.** Trigeminal neuralgia and persistent trigeminal artery. *Neurol Sci* 2012; 33(6): 1455–1458.
3. **Azab W, Delashaw J, Mohammed M.** Persistent primitive trigeminal artery: a review. *Turk Neurosurg* 2012; 22(4): 399–406.
4. **Zampakis P, Panagiotopoulos V, Petsas T, Kalogeropoulou Ch.** Common and uncommon intracranial arterial anatomic variations in multi-detector computed tomography angiography (MDCTA). What radiologists should be aware of. *Insights Imaging* 2015; 6(1): 33–42.
5. **Dimmick SJ, Faulder KC.** Normal variants of the cerebral circulation at multi-detector CT angiography. *Radiographics* 2009; 29(4): 1027–1043.
6. **Pereira LP, Nepomuceno LA, Coimbra PP, Oliveira Neto SR, Natal MR.** Persistent trigeminal artery: angio-tomography and angio-magnetic resonance finding. *Arq Neuropsiquiatr* 2009; 67(3B): 882–885.
7. **Uchino A, Sawada A, Takase Y, Kudo S.** MR angiography of anomalous branches of the internal carotid artery. *AJR Am J Roentgenol* 2003; 181(5): 1409–1414.
8. **Seltzer J, He S, Shiroishi MS, Lucas JW, et al.** Coincident intrasellar persistent trigeminal artery and craniopharyngioma: case report and implications for transphenoidal surgery. *Interdisciplinary neurosurgery: advanced techniques and case management* 2014; 1(4): 91–93.
9. **Alcalá-Cerra G, Tubbs RS, Niño-Hernández LM.** Anatomical features and clinical relevance of a persistent trigeminal artery. *Surg Neurol Int* 2012; 3: 111.
10. **Kato N, Tanaka T, Sakamoto H, et al.** Identification of a persistent primitive trigeminal artery following the transposition technique for trigeminal neuralgia: a case report. *Pain Res Manag* 2011; 16(5): 357–359.
11. **Krajina A, Hlava A.** Angiografie. Hradec Králové: Nucleus 1999; 114.
12. **Rhee SJ, Kim MS, Lee ChH, Lee GJ.** Persistent trigeminal artery variant detected by conventional angiography and magnetic resonance angiography-incidence and clinical significance. *J Korean Neurosurg Soc* 2007; 42(6): 446–449.