

## Πρωτοπαθές αυτόματο πνευμομεσοπνευμόνιο με υποδόριο εμφύσημα σε κορίτσι 13 χρόνων

Μ. Εμποριάδου, Π. Καλαϊδοπούλου, Κ. Χαϊδοπούλου,  
Ζ. Χαλέμης, Γ.Σ. Βαρλάμης, Στ. Καραμπέρης

Δ' Πανεπιστημιακή Παιδιατρική Κλινική Α.Π.Θ., Νοσοκομείο ΑΧΕΠΑ, Θεσσαλονίκη

**Περίληψη.** Περιγράφεται περίπτωση αυτόματου πνευμομεσοπνευμονίου με υποδόριο εμφύσημα σε κορίτσι ηλικίας 13 χρόνων. Η νόσος εκδηλώθηκε αιφνίδια, σε ηρεμία, χωρίς να προηγηθεί λοίμωξη ή τραυματισμός, με συσφικτικό οπισθοστερνικό άλγος. Η διάγνωση τέθηκε με βάση την κλινική εικόνα, κριγμός στο πρόσθιο θωρακικό τοίχωμα και τον τράχηλο, και την παθολογική ακτινογραφία θώρακα. Αντιμετωπίστηκε συντηρητικά με οξυγόνο και κλινοστατισμό. Στον επανέλεγχο, 10 μέρες αργότερα, τα ευρήματα, κλινικά και εργαστηριακά, ήταν φυσιολογικά. Ο έλεγχος για ύπαρξη υποκείμενης νόσου ήταν αρνητικός. Γίνεται σύντομη ανασκόπηση της αιτιολογίας και της παθοφυσιολογίας του πνευμομεσοπνευμονίου στα παιδιά.

**Λέξεις-κλειδιά:** αυτόματο πνευμομεσοπνευμόνιο, υποδόριο εμφύσημα

**Eboriadou M, Kalaidopoulou P, Haidopoulou K, Halemis Z, Varlamis GS, Karamperis St. Primary spontaneous pneumomediastinum with subcutaneous emphysema in a 13 year old girl.** 4<sup>th</sup> Department of Pediatrics, Aristotelion University of Thessaloniki, Greece. *Paediatr N Gr* 2001, 13: 171 - 175.

*We describe a case of primary spontaneous pneumomediastinum with subcutaneous emphysema in a 13 year old girl. The episode began suddenly, with no preceding infection or trauma, with a retrosternal pain. The diagnosis was based on the clinical picture, crunch on the front chest wall and neck, and pathological chest roentgenogram. The patient was managed with oxygen and bed-rest. In reevaluation, ten days later, both clinical and laboratory findings were normal. The investigation for the presence of an underlying cause was negative. A short review on etiology and pathophysiology of pneumomediastinum in children is mentioned.*

**Key words:** spontaneous pneumomediastinum, subcutaneous emphysema

### Εισαγωγή

Ως πνευμομεσοπνευμόνιο περιγράφεται η κατάσταση εκείνη που οφείλεται στην είσοδο αέρα στο συνδετικό ιστό του πνευμομεσοπνευμονίου (μεσαύλιο)<sup>1</sup>. Παρουσιάζεται συνήθως μετά από τραύμα ή χειρουργικές επεμβάσεις σε παρακείμενες δομές, όπως στομεσαύλιο, πνεύμονες, θωρακικό τοίχωμα, τράχηλο και ακόμη οπισθοπεριτο-

ναϊκό χώρο<sup>2,3</sup>, παραρρινικές κοιλότητες<sup>4</sup>, και σπάνια σε οδοντιατρικές πράξεις<sup>1,5</sup>. Εκδηλώνεται συχνότερα με πόνο στο στήθος και δύσπνοια, αν και είναι δυνατό να είναι ασυμπτωματικό<sup>3</sup>. Το πνευμομεσοπνευμόνιο μπορεί να επιπλακεί με υποδόριο εμφύσημα (ή το αντίστροφο) και να απειλήσει ακόμα και τη ζωή του ασθενούς (καρδιοαναπνευστικά προβλήματα)<sup>4,5</sup>. Περιγράφουμε μια περίπτωση πνευμομεσοπνευμονίου με υποδόριο εμφύ-

σημα αγνώστου αιτιολογίας, που εκδηλώθηκε σε ηρεμία, σε μεγάλο κορίτσι.

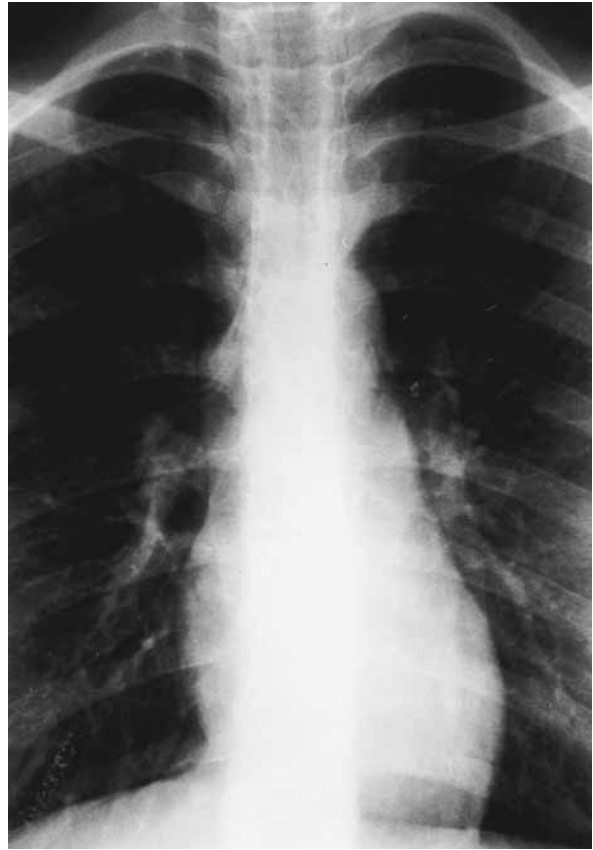
### Περιγραφή περίπτωσης

Πρόκειται για κορίτσι ηλικίας 13 χρονών το οποίο προσήλθε στην κλινική μας μετά από αιφνίδια εμφάνιση οπισθοστερνικού άλγους με συσφικτικό χαρακτήρα. Από το ατομικό της ιστορικό η ασθενής γεννήθηκε τελειόμηνη, με κολπικό τοκετό, χωρίς περιγεννητικά προβλήματα, ενώ έχει ετερόζυγη β-μεσογειακή αναιμία και υπεριδρωσία παλαμών-πελμάτων από την έναρξη της εφηβείας της. Στο οικογενειακό της ιστορικό, ο πατέρας είναι φορέας β-μεσογειακής αναιμίας και η μητέρα παρουσίαζε κι αυτή υπεριδρωσία παλαμών-πελμάτων στην εφηβεία της και μέχρι να ενηλικιωθεί.

Το άλγος εμφανίστηκε 8 ώρες πριν την εισαγωγή, σε ηρεμία και χωρίς να έχει προηγηθεί λοίμωξη ή τραυματισμός. Δεν είχε σχέση με την αναπνοή ή τις κινήσεις και παρουσίασε σταδιακή επιδείνωση και επέκταση προς τον τράχηλο. Από την αντικειμενική εξέταση διαπιστώθηκε ήχος τριβής αριστερά παραστερνικά, που ακολουθούσε τον καρδιακό ρυθμό (σημείο Hamman). Δεν υπήρχαν σημεία αναπνευστικής δυσχέρειας, τα ζωτικά σημεία δεν είχαν επηρεαστεί και ο κορεσμός σε οξυγόνο του αρτηριακού αίματος ήταν φυσιολογικός ( $\text{SaO}_2$ :99%).

Ο αρχικός αιματολογικός και βιοχημικός έλεγχος έδειξε: Λευκά: 11900 κκχ, τύπος: Π: 64%, Λ: 26%, Μ.Μ.: 9%, Hb: 10,2 gr/dl, Ht: 34%, MCV: 46 $\mu^3$ , MCH: 46μμg, PLT: 466000κκχ, TKE: 5mm<sup>1</sup> ώρα, Fe: 105γ, φερρίνη: <10, CRP: <0,31mg/dl, CPK: 52mg/dl, SGOT: 31u/l, SGPT: 15u/l, γGT: 14u/l, αλκαλική φωσφατάση: 232mg/dl, γλυκόζη: 95mg/dl, ουρία: 24mg/dl, K: 3,8mmol/l, Na: 143 mmol/l. Το ΗΚΓ ήταν φυσιολογικό, η α/α θώρακος έδειξε εικόνα πνευμομεσοπνευμονίου (Εικ. 1,2), ενώ η α/α κοιλίας και το υπερηχογράφημα καρδιάς ήταν φυσιολογικά. Η ασθενής αντιμετωπίστηκε μόνο με την χορήγηση οξυγόνου με μάσκα, λόγω της καλής γενικής κατάστασής της, και κατάκλιση σε ηρεμία. Την επόμενη ημέρα, κατά την κλινική εξέταση, διαπιστώθηκε επιπλέον κριγμός στα μαλακά μόρια του θώρακα και του τραχήλου. Σε όλο αυτό το διάστημα η ασθενής ήταν σε καλή κατάσταση και μετά από ένα εικοσιτετράωρο διακόπηκε η χορήγηση οξυγόνου.

Λόγω της έλλειψης εμφανούς αιτίας για το πνευμομεσοπνευμόνιο, η ασθενής υποβλήθηκε σε



**Εικ. 1.** Α/α θώρακα που δείχνει πνευμομεσοπνευμόνιο και υποδόριο εμφύσημα στην περιοχή του τραχήλου. Δεν υπάρχει πνευμοθώρακας.

εκτεταμένο εργαστηριακό έλεγχο με στόχο τον αποκλεισμό υποκείμενης πάθησης. Στη διαφορική διάγνωση συμπεριλήφθηκαν: α) διαταραχές του συνδετικού ιστού (έλλειψη α1-αντιθρυψίνης κ αλ.), β) λοίμωξη πεπτικού ή αναπνευστικού, γ) ιατρογενής αιτία (οδοντιατρικές εργασίες κ αλ.), δ) συγγενείς ανωμαλίες πνευμόνων, τραχειοβρογχικού δένδρου, οισοφάγου (κύστεις κ. αλ.) και ε) χρόνια νοσήματα αναπνευστικού (βρογχικό άσθμα κ.αλ.).

Ο έλεγχος αυτός συμπεριλάμβανε: σπιρομέτρηση με εκτίμηση κυρίως PEF/FVC και FEV<sub>1</sub>, ποσοτικό προσδιορισμό χλωριούχων ιδρώτα, επίπεδα α1-αντιθρυψίνης και ανοσοσφαιρινών, δοκιμασία κάθαρσης κροσσώτου επιθηλίου και αξονική τομογραφία θώρακα υψηλής ευκρίνειας (HR-CT) (Εικ. 3α,3β).

Καθώς από τον παραπάνω έλεγχο δεν προέκυψαν παθολογικά ευρήματα, η διάγνωση που τέθηκε ήταν πρωτοπαθές αυτόματο πνευμομεσοπνευμόνιο. Κατά τον επανέλεγχο της ασθενούς 10 μέρες αργότερα, τα κλινικά και απεικονιστικά ευρήματα ήταν φυσιολογικά.



**Εικ. 2.** Α/α θώρακα σε κορίτσι ηλικίας 13 χρόνων (πλάγια λήψη), που δείχνει πνευμομεσοπνευμόνιο με συλλογή αέρα οπισθοκαρδιακά.

### Συζήτηση

Η συχνότητα του πνευμομεσοπνευμονίου στα φυσιολογικά νεογνά είναι 2% περίπου,<sup>6</sup> ενώ στα βρέφη με υποκείμενο πνευμονικό νόσημα πολύ υψηλότερη<sup>7</sup>.

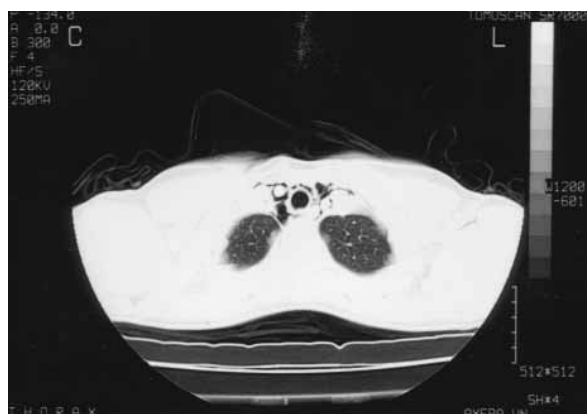
Ανατομικές δομές του σώματος όπως ο οισοφάγος, έντερο, τραχεία ή πνεύμονες είναι γνωστό

ότι περιέχουν αέρα, και επομένως θα μπορούσαν να αποτελέσουν πηγές διαφυγής αέρα προς το μεσοπνευμόνιο από διάφορες αιτίες. Η τραχεία και ο οισοφάγος βρίσκονται μέσα στο μεσαύλιο, αλλά το στομάχι και το έντερο είναι στην περιτοναϊκή κοιλότητα και τον οπισθοπεριτοναϊκό χώρο<sup>8</sup>. Είναι πολύ γνωστό ότι διάτρηση του πεπτικού σωλήνα θα μπορούσε να προκαλέσει πνευμομεσοπνευμόνιο<sup>9</sup>. Η πιο συχνή όμως πηγή διαφυγής αέρα στο μεσαύλιο θεωρούνται οι πνεύμονες. Ρήξη υπερδιατεταμένων κυψελίδων μπορεί να συμβεί εύκολα με την αύξηση της κυψελιδικής πίεσης και/ή την εξασθένηση/τραυματισμό του τοιχώματος, που συμβαίνει σε πολλές παθολογικές καταστάσεις.

Το βρογχικό άσθμα είναι μια από τις τυπικές νόσους απόφραξης των αεροφόρων οδών, στις οποίες ο βρογχόσπασμος και η απόφραξη από εκκρίσεις βλέννης οδηγούν σε εγκλωβισμό αέρα και επομένως σε αύξηση της ενδοκυψελιδικής πίεσης. Η ασθενής μας δεν είχε ιστορικό βρογχικού άσθματος και επομένως αυτό αποκλείστηκε σαν αιτία του πνευμομεσοπνευμονίου. Αναφέρεται ότι η εμφάνιση πνευμομεσοπνευμονίου υπολογίζεται στο 2-5% όλων των παθολογικών ακτινογραφιών θώρακα σε παιδιά που νοσηλεύονται στο νοσοκομείο για ασθματική κρίση<sup>10,11</sup>.

Η προσπάθεια ανύψωσης βάρους, η δυσκοιλιότητα, οι έμετοι, ο εργώδης βήχας ή οι βαθείς αναπνευστικές κινήσεις και η ανησυχία που συνοδεύεται από δύσπνοια μπορεί να οδηγήσουν σε ρήξη κυψελίδων. Στο ιστορικό της ασθενούς μας δεν αναφέρεται τίποτα από τα παραπάνω και επομένως δεν ενοχοποιήθηκαν ως αιτία ρήξης κυψελίδων.

Η διαφυγή αέρα μέσα από το κυψελιδικό τοίχωμα γίνεται κατά μήκος του τοιχώματος των αγγείων και περιβρογχικά, με κατεύθυνση προς το με-



**Εικ. 3.** Αξονική τομογραφία θώρακος σε κορίτσι 13 χρόνων που δείχνει συλλογή αέρα στο μεσαύλιο (α) και υποδόριο ιστό (β).

σαύλιο και αυτό έχει ονομασθεί διάμεσο πνευμονικό εμφύσημα<sup>4,12,13</sup>. Το διάμεσο πνευμονικό εμφύσημα ακτινολογικά έχει εικόνα υπερδιαφανούς δικτύου με βρογχαγγειακές σκιάσεις, εύκολο να διαγνωσθεί στα νεογνά, αλλά δύσκολο σε άλλες ηλικίες και θεωρείται σαν πρώιμο ακτινολογικό σημείο, πριν συμβεί το πνευμομεσοπνευμόνιο ή ο πνευμοθώρακας<sup>3</sup>. Στην αξονική τομογραφία είναι ευκολότερο να απεικονιστούν οι περιβρογχικές διηθήσεις αέρα.<sup>12</sup> Στη δική μας περίπτωση δεν εντοπίστηκε διάμεσο πνευμονικό εμφύσημα, ούτε στην απλή ακτινογραφία θώρακα, ούτε και στην αξονική τομογραφία, παρά μόνο στο μεσαύλιο, στην περιοχή του τραχήλου και στον υποδόριο ιστό.

Ο αέρας που διαφεύγει και παραμένει στο μεσαύλιο συνθλιβόμενος μεταξύ του υπεζωκότα και του περικαρδίου κατά τις αναπνευστικές κινήσεις και τις καρδιακές κινήσεις δημιουργεί ήχο ακουστό στο κατώτερο τρίτημόριο του στένονου, που μοιάζει με ήχο τριβής (σημείο Hamman), σημείο που υπήρχε στην ασθενή μας από την πρώτη εξέταση.

Ο αέρας του μεσοπνευμονίου διαπερνά τον λιπώδη ιστό προς κάθε κατεύθυνση και ο περισσότερος ανέρχεται στον τράχηλο, διαμέσου του καρωτιδικού διαστήματος, οπισθοφαρυγγικά ή προσπονδυλικά και κατά μήκος της τραχείας ή των μυών. Ένα μέρος του διαχέεται στον υποδόριο λιπώδη ιστό του τραχήλου, προσώπου, άκρων, ή κορμού προκαλώντας “κρίγμο χιονιού” στη φυσική εξέταση. Τα ευρήματα αυτά διαπιστώθηκαν και στην ασθενή μας 12 ώρες μετά από τη διάγνωση του πνευμομεσοπνευμονίου, ενδεικτικό διασποράς αέρα από το μεσαύλιο.

Το πνευμομεσοπνευμόνιο συνοδεύεται από πνευμοθώρακα σε ποσοστό 10-50%, αλλά είναι παγκόσμια αποδεκτό ότι η υψηλή πίεση αέρα του μεσαυλίου συχνά προκαλεί ρήξη προς τις πλευρές, και διάμεσο πλευρικό διάστημα για αποσυμφορηση, ενώ δεν συμβαίνει το αντίθετο φαινόμενο<sup>3</sup>. Ο πρωτοπαθής πνευμοθώρακας απλά πιέζει ή μετατοπίζει το μεσαύλιο χωρίς να προκαλεί ρήξη στην κοιλότητα του μεσαυλίου<sup>3,14</sup>. Στην ασθενή μας δεν παρατηρήθηκε πνευμοθώρακας.

Ο αέρας του πνευμομεσοπνευμονίου επίσης επεκτείνεται ευθέως στην εξωπεριτοναϊκή κοιλότητα και στον εξωπλευρικό χώρο κάτω από το διάφραγμα που απεικονίζεται ακτινολογικά παρόμοια με το πνευμοπεριτόναιο. Η διαφορική διάγνωση γίνεται με τη λήψη ακτινογραφίας από διαφορετική θέση επειδή ο αέρας στην κλειστή κοιλότητα τείνει να διατηρεί το σχήμα και τη θέση στις διαφορετικές τοποθετήσεις. Αέρας από το μεσοπνευμόνιο προς

τον πνεύμονα ποτέ δεν έχει αναφερθεί, πιθανόν λόγω του συστήματος υψηλότερης πίεσης από τα διάμεσα πνευμονικά διαστήματα.<sup>3</sup> Έτσι, σε σχέση με την ασθενή μας πιστεύουμε ότι η πηγή αέρα ήταν ο πνεύμονας από αυτόματη ρήξη κυψελίδων αγνώστου αιτιολογίας προς το μεσαύλιο (πνευμομεσοπνευμόνιο) και μετά στον υποδόριο ιστό (υποδόριο εμφύσημα). Το οπισθοπεριτόναιο, υπορογόνιο διάμεσο τοίχωμα και ο μεσεντέριος λιπώδης ιστός είναι συνέχεια ιστών διαμέσου της αορτικής, οισοφαγικής και άνω κοιλής φλέβας στο μεσαύλιο. Έτσι ο αέρας μεταναστεύει εύκολα και φυσικά διαμέσου αυτών των δομών χωρίς την ανάγκη καμιάς επιπλέον δύναμης, απλά ακολουθώντας τους κανόνες της φύσης.<sup>3</sup> Ο έλεγχος της κοιλιακής χώρας στην ασθενή μας ήταν αρνητικός για παθολογικά αίτια, ρήξη οργάνου και δημιουργία του πνευμομεσοπνευμονίου.

Στη βιβλιογραφία αναφέρεται σπάνια πιθανή εμφάνιση επισκληριδίου εμφυσήματος με πνευμομεσοπνευμόνιο, ιδιαίτερα σε ασθματικά παιδιά.<sup>15</sup> Όμως η χρήση αξονικής τομογραφίας ως εξέταση ρουτίνας σε ασθενείς με πνευμομεσοπνευμόνιο ορατό στην ακτινογραφία θώρακα δεν έχει ακόμη οριστικοποιηθεί<sup>14</sup>.

Η απορρόφηση του αέρα γίνεται αυτόματα σε όλες τις ανατομικές θέσεις που έχουν προσβληθεί και στην παρακολούθηση του υποδορίου εμφυσήματος και πνευμομεσοπνευμονίου αρκεί η ακτινογραφία θώρακα. Στην ασθενή μας η απορρόφηση του αέρα έγινε σε 10 ημέρες και η παρακολούθησή της μέχρι σήμερα, ένα χρόνο μετά, δεν έδειξε τίποτα το παθολογικό.

Τέλος αναφέρεται ως αιτία αυτόματου πνευμομεσοπνευμονίου η λεπτή σωματική κατασκευή<sup>1</sup> και η έναρξη της έμμηνης ρύσης<sup>1</sup> πράγμα που, αποκλείοντας από το ιστορικό, την κλινική εικόνα και τον απεικονιστικό έλεγχο τις άλλες καταστάσεις, πιθανολογήθηκε στην ασθενή μας.

Η αντιμετώπιση του πνευμομεσοπνευμονίου είναι συμπτωματική, με χορήγηση υγροποιημένου οξυγόνου για λίγες ημέρες<sup>1,16</sup>.

Συμπερασματικά μπορούμε να πούμε ότι η ασθενής μας παρουσίασε αυτόματο πνευμομεσοπνευμόνιο με υποδόριο εμφύσημα σε ηρεμία και σε άγνωστο παθολογικό έδαφος (ιδιοπαθές), που ιάθηκε μέσα σε μικρό χρονικό διάστημα. Το οξύ αιφνίδιο οπισθοστερνικό άλγος, η ανεύρεση του θετικού σημείου Hamman και ο κρίγμος στο θώρακα και στον τράχηλο ήταν σημεία καθοριστικά για τη διάγνωση του πνευμομεσοπνευμονίου στην

ασθενή μας και θα πρέπει να τα αναζητούμε σε κάθε παιδί με παρόμοια κλινική εικόνα.

## Βιβλιογραφία

1. *Orenstein DM*. Diseases of the pleura. In: Behrman, Kliegman, Jenson eds. Nelson Textbook of Pediatrics. 16th ed. Philadelphia: WB Saunders Co. 2000: 1332-3.
2. *Kullaa-Mikkonen A, Mikkonen M*. Subcutaneous emphysema. Br J Oral Surg 1982, 20: 200-2.
3. *Furuse M*. Pneumomediastinum – What can we learn?. Internal Medicine 1998, 37, 10: 802-3.
4. *Sivaloganathan K, Whearm NH*. Surgical emphysema during restorative dentistry. Br Dent J 1990, 169: 93-4.
5. *Κανάρης Α, Ταχλιαμπούρης Ν, Πετροπούλου Χ, Ζώση Π, Γεωργιάδης Η, Καλής Χ*. Υποδόριο εμφύσημα – σπάνια επιπλοκή μετά από οδοντιατρική πράξη. Παιδιατρική 1999, 62: 82-3.
6. *Steele RW, Metz JR, Bass JW, Dubois JJ*. Pneumothorax and pneumomediastinum in the newborn, Radiology 1971, 98: 629-32.
7. *Ogata ES, Gregory GA, Kitterman JA, Phibbs RH, Tooley WH*. Pneumothorax in the respiratory distress syndrome. Incidence and effect on vital signs, blood gases and pH, Pediatrics 1976, 58: 177-83.
8. *Rogers LF, Puig AW, Dooley BN, Cuello L*. Diagnostic considerations in mediastinal emphysema: a pathologic-roentgenologic approach to Boerhaave's syndrome and spontaneous pneumomediastinum. AJR 1972, 115: 495-511.
9. *Danse EM, Van Beers BE, Goncette L, Pringot J*. Gastric pneumatosis with findings of retroperitoneal and mediastinal air. Emergency Radiol 1997, 4: 38-40.
10. *Gillies JD, Reed MH, Simmons FER*. Radiographic findings in acute childhood asthma. J Can Assoc Radiol 1978, 29: 28-33.
11. *Eggleston PA, Ward PH, Pierson WE*. Radiographic abnormalities in acute asthma in children. Pediatrics 1974, 54: 442-9.
12. *Sullivan TP, Pierson DJ*. Pneumomediastinum after free-base cocaine use. AJR 1997, 168:84-8.
13. *Jamadar DA, Kazerooni EA, Hirschl RB*. Pneumomediastinum: elucidation of the anatomic pathway by liquid ventilation. JCAT 1996, 20: 309-311.
14. *Heitzman ER*. The Mediastinum, 2nd Ed., Springer-Verlag, 1988.
15. *Caramella D, Bulleri A, Battolla L, Pifferi M, Baldini G, Bartolozzi C*. Spontaneous epidural emphysema and pneumomediastinum during an asthmatic attack in a child. Pediatr Radiol 1997, 27: 929-31.
16. *Bancalari E, Bidegain M*. Respiratory Disorders of the Newborn. In: Taussig, Landau, Le Souëf, Martinez, Morgan, Sly eds. Pediatric respiratory medicine. St. Louis: Mosby Co. 1999: 478-80.

### Αλληλογραφία:

M. Εμποριάδου  
Στύλπωνος Κυριακίδη 1  
54636 Θεσσαλονίκη  
Τηλ. (031) 994819 Fax: (031) 994810

### Corresponding author:

M. Emboriadou  
1, Stilponos Kiriakidi Str.  
Thessaloniki 54636  
Greece  
Tel: (031) 994819 Fax: (031) 994810