

doi : 10.52485/19986173_2021_1_124

УДК 616.333-053.2:616.853-053.2

Маруева Н.А., Ширшов Ю.А., Хижук И.В.

**НЕВРОЛОГИЧЕСКАЯ ПАТОЛОГИЯ, АССОЦИИРОВАННАЯ
С ГАСТРОЭЗОФАГАЛЬНЫМ РЕФЛЮКСОМ, У ДЕТЕЙ**

Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Читинская государственная медицинская академия» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 672000, г. Чита, ул. Горького, 39а

Резюме. При гастроэзофагальной рефлюксной болезни у детей возможно возникновение редкой неврологической патологии – синдрома Сандифера. Имеется большая вероятность ошибочной диагностики первичных поражений нервной системы. Дифференциальная диагностика эпилепсии и синдрома Сандифера сложна, одной из причин затруднений установления диагноза является то, что данные инструментальных методов не всегда имеют абсолютное диагностическое значение. В статье представлен случай пациента с синдромом Сандифера с клинически не значимыми эпилептическими изменениями на электроэнцефалограмме.

Ключевые слова: эпилепсия, дети, синдром Сандифера, диагностика.

Marueva N.A., Shirshov Yu.A., Chizuk I.V.

**NEUROLOGICAL PATHOLOGY ASSOCIATED WITH GASTROESOPHAGEAL
REFLUX IN CHILDREN**

Chita State Medical Academy, 39a, Gorky's street, Chita, Russia, 672000

Abstract. Children with gastroesophageal reflux disease can develop a rare neurological pathology, Sandifer syndrome. There is a high probability of erroneous diagnosis of primary lesions of the nervous system. Differential diagnosis of epilepsy and Sandifer syndrome is complex. One of the reasons for the difficulties in making the diagnosis is that the data of instrumental methods do not always have an absolute diagnostic value. The article presents a case of a patient with Sandifer syndrome with clinically insignificant epileptic changes on the electroencephalogram.

Key words: epilepsy, children, Sandifer syndrome, diagnosis.

Многие пароксизмальные состояния и заболевания по своим внешним проявлениям напоминают эпилептические приступы. Пароксизм – это преходящие, ограниченные во времени, самостоятельно разрешающиеся симптомы. При эпилепсии пароксизмальное событие обусловлено гиперсинхронной и избыточной нейрональной активностью. Причиной неэпилептических пароксизмов могут являться соматогенные, нейрогенные и психогенные расстройства [1]. Согласно данным литературы, от 20 до 25% пациентов с диагнозом «эпилепсия», а при установлении диагноза «фармакорезистентная эпилепсия» – до 45%, ею не страдают [2, 3, 4]. Объективные сложности в дифференциальной диагностике объясняются и тем, что возможно сочетание пароксизмальных состояний неэпилептического происхождения с эпилепсией [2]. Важно помнить, что установление диагноза эпилепсии влечёт за собой социальные, медицинские, психологические и экономические последствия [2, 5, 6]. Но и промедление с назначением лечения может вести к ухудшению течения заболевания. Поскольку ошибочно установленный диагноз препятствует назначению адекватного лечения и выздоровлению пациента как с эпилепсией, так и с неэпилептическими пароксизмальными состояниями [3, 4].

Одним из соматогенных состояний, требующим проведения дифференциальной диагностики с эпилепсией, является синдром Сандифера [2, 5, 7, 8]. Синдром Сандифера – это состояние с эпизодами тонического напряжения в мышцах верхних конечностей и шеи с наклоном головы, которое обусловлено гастроэзофагальным рефлюксом (ГЭР) у детей первых лет жизни [2, 5]. В 1969 году в Великобритании радиолог Джон Сатклифф назвал ассоциацию диафрагмальной грыжи с движениями головы и шеи «синдромом Сандифера». Первое упоминание о случае синдрома Сандифера представлено в публикации М. Kinsburna

и D. Охона [7]. Истинная распространенность синдрома Сандифера неизвестна, предположительно он встречается примерно у 1 % детей с ГЭР [5].

Выделяют два типа синдрома Сандифера. Причиной синдром Сандифера I типа является ГЭР. Этот вариант возникает у детей до 6 месяцев. Отличие синдрома Сандифера II типа заключается в том, что в этом случае ГЭР обусловлен наличием грыжи пищеводного отверстия диафрагмы, и, хотя клиническая картина такая же, как и при I типе, страдают дети старшего возраста [2].

Отдельные авторы описывают случаи, когда причиной синдрома Сандифера может служить парез желудка [9]. Также существует гипотеза, что необычные позы, кривошея и тикоподобные движения при синдроме Сандифера могут быть вызваны неизвестным фактором, который вызывает наклон головы с одновременным сокращением мышц передней брюшной стенки, что и приводит к появлению рефлюкса [5, 6].

Типичные проявления синдрома Сандифера представлены диспептическими нарушениями, которые сочетаются с пароксизмальными состояниями с напряжением мышц шеи, плечевого пояса, или генерализованным сокращением мускулатуры. Дистоническая поза может сохраняться 1-3 мин, иногда сопровождается апноэ, остановкой взора и незначительными подёргиваниями в конечностях. Описанные эпизоды обычно возникают в течение первых 30 мин после еды [3, 4, 5, 8]. Течение рассматриваемого патологического состояния может осложняться присоединением респираторных осложнений, с появлением кашля, хрипов, стридора [5]. В литературе описаны случаи, когда у ребёнка с синдромом Сандифера отсутствовали признаки ГЭР и связь дистонических эпизодов с приёмом пищи [5]. В таких ситуациях риск установления неверного диагноза особенно высок, именно поэтому Международная противосудорожная лига отнесла синдром Сандифера в группу различных событий, имитирующих эпилепсию [3, 4, 5].

Синдром Сандифера обычно диагностируют у детей от 1,5 до 3 лет [10]. По материалам других авторов, синдром Сандифера чаще встречается в возрасте 2 месяцев [5]. При наличии сопутствующих психических расстройств его проявления сохраняются вплоть до взрослого возраста [5, 10].

Отдельные авторы указывают, на то, что риск развития синдрома Сандифера выше у детей при соматической патологии, такой как бронхиальная астма, муковисцидоз [6], пищевой аллергии [5, 11], в частности, к белку коровьего молока [5], анемии, болезнях обмена веществ, синдроме Брахмана – де Ланге и Опица [5]. Описаны случаи сочетания синдрома Сандифера с неврологическими заболеваниями [12], синдромом Веста [5, 8].

Некоторые авторы, считают, что все пациенты с синдромом Сандифера нуждаются в проведении исследования нервной системы (электроэнцефалографии (ЭЭГ) и нейровизуализации), большинство же исследователей рекомендуют подобные обследования только при выявлении признаков поражения нервной системы [3, 4, 5, 13]. Ведущим методом инструментальной диагностики, позволяющим отдифференцировать эпилепсию и неэпилептические пароксизмальные состояния, является ЭЭГ [1, 5, 14, 15]. Однако, в литературе описаны случаи, когда даже иктальная ЭЭГ при эпилепсии была нормальной, возможны и обратные ситуации с обнаружением эпилептических разрядов у здоровых людей [2, 3, 4]. Согласно данным многих авторов, при синдроме Сандифера регистрация ЭЭГ не выявляет патологической активности [3, 4, 8]. В то же время есть наблюдения, когда в ЭЭГ при синдроме Сандифера регистрируются мультифокальные изменения на фоне замедления основной активности [8].

Вышесказанное указывает на объективные трудности дифференцировки эпилепсии и синдрома Сандифера, и необходимость соотнесения динамических изменений клинической ситуации с результатами инструментальных методов диагностики.

Цель. Демонстрация клинического случая синдрома Сандифера с патологическими изменениями в ЭЭГ в момент пароксизмального события.

Девочка А., 4 года, родилась от III беременности, которая протекала на фоне субкомпенсированной фетоплацентарной недостаточности, хронической внутриутробной

гипоксии плода, тяжелой преэклампсии, хронического пиелонефрита, хронического панкреатита. В 33 недели была угроза прерывания беременности по поводу чего проводилось лечение в стационаре. Преждевременные оперативные роды на сроке 36 недель с весом 2270 г. Оценка по шкале Апгар 7-7 баллов. Получала лечение в отделении патологии новорожденных с диагнозом: нетравматическое билатеральное внутрижелудочковое кровоизлияние первой степени, синдром угнетения. Со слов мамы развивалась с задержкой моторного развития – начала ходить в 1 год 4 месяца. Наблюдалась у невролога с диагнозом: перинатальное поражение центральной нервной системы. Синдром двигательных расстройств. Синдром вегетативно-висцеральных нарушений. Натальная травма шейного отдела позвоночника.

Со слов родителей, через три недели после вирусной инфекции с повышением температуры до 40 градусов и катаральными явлениями, появилось светлое пенистое отделяемое из носа слева, при этом отмечались периодические легкие наклоны головы влево. Обратились за помощью к отоларингологу, было назначено лечение. Наклоны головы участились, и приведение головы стало более продолжительным. К наклонам головы присоединилось «урчание» в животе. Эти симптомы появлялись после еды и эмоционального перенапряжения, исчезали во время еды и во сне. По этому поводу обратились к гастроэнтерологу. Проведена рентгеноскопия желудка, которая выявила недостаточность кардии, ГЭР III степени. Заключительный диагноз: гастроэзофагеальная болезнь, ГЭР 3–4 степени. Назначено консервативное лечение, на фоне которого жалобы сохранялись в прежнем объеме. В возрасте 3 лет 8 месяцев обратились к неврологу с жалобами на задержку речевого развития (нет слов, ограниченное понимание обращенной речи), на частые произвольные наклоны головы влево. При осмотре: череп правильной формы. Движение глазных яблок не ограничено. Зрачки D=S. Лицо симметричное. Слух не нарушен. Нистагма нет. Глотание не нарушено. Мышечный тонус снижен в конечностях, D=S. Сухожильные рефлексы живые с рук, с ног оживлены, D=S. Опора с вальгусной установкой стоп. Ходит периодически на носочках, часто запинаясь.

На приеме отмечались кратковременные эпизоды тонического напряжения мышц шеи с наклоном и приведением головы в левую сторону, которые возникли в момент и после осмотра. Невролог рекомендовал консультацию гастроэнтеролога, магнитно-резонансную томографию (МРТ) головного мозга, дневной видеоэлектроэнцефалографический мониторинг (ВЭЭГМ). При проведении МРТ головного мозга с напряженностью магнитного поля 1,5 Тесла в белом веществе лобных долей субкортикально обнаружены одиночные мелкие очаги с повышенным сигналом, в перивентрикулярном веществе передних рогов боковых желудочков и в базальных ганглиях – расширение перивентрикулярных пространств, ретроцеребеллярная киста 27x16x18 мм. ВЭЭГМ (обследование проведено в отделении функциональной диагностики НУЗ «Дорожная клиническая больница на станции Чита 2 ОАО «РЖД» к.м.н. Петровым А.П.) – основной ритм бодрствования соответствует возрасту. Легкие диффузные изменения. Сон модулирован по фазам, физиологические паттерны non-REM сна выражены удовлетворительно. Клинические события: форсированное пробуждение (в комнату зашла медсестра) в 10:28:24. В 10:31:19 зафиксирован моторный приступ с вовлечением мимической мускулатуры и отклонением головы назад. В ЭЭГ отмечено появление ритмичной тета-волновой активности, рисунок 1.

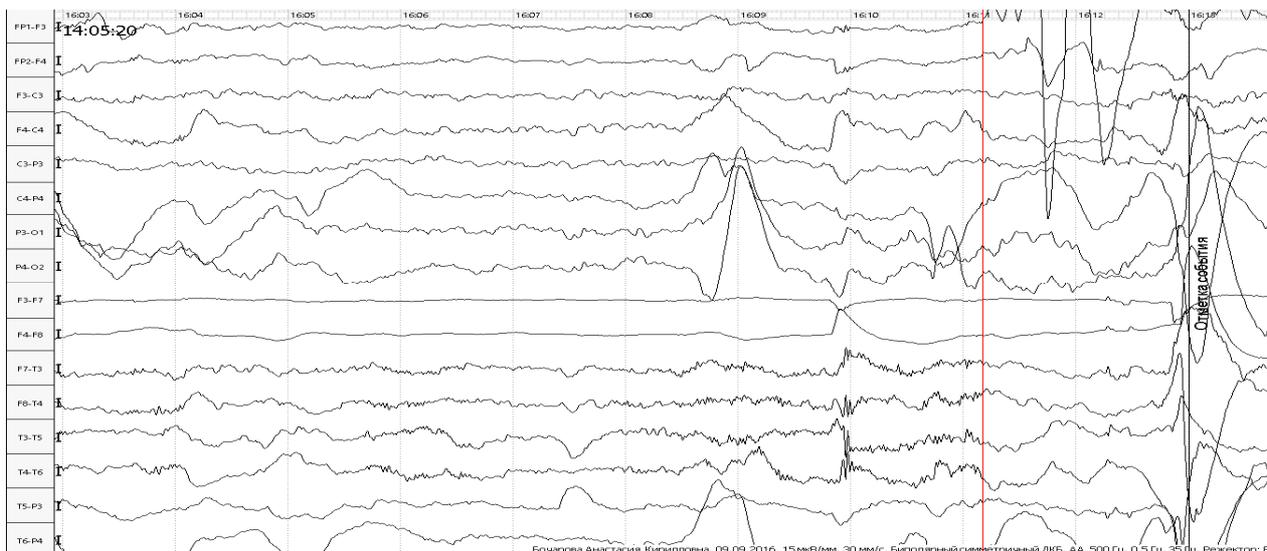


Рис. 1. Пациентка А., фрагмент записи дневного ВЭЭГМ.
Иктальная ЭЭГ – ритмичная тета-волновая активность.

По результатам ВЭЭГМ консультирована неврологом-эпилептологом, выставлен диагноз: фокальная эпилепсия, неуточненной этиологии, фокальные моторные приступы. Задержка темпов речевого развития. Синдром Сандифера. Назначен антиэпилептический препарат (АЭП) – окскарбазепин 20 мг/кг/сутки (300 мг/сут). На фоне лечения приступы сохранялись с прежней частотой.

Проведено оперативное лечение ГЭР. Сразу после хирургического лечения состояние с отрицательной динамикой – резко увеличилась частота приступов. Проведен контрольный ВЭЭГМ, результаты которого остались прежними: зафиксирован фокальный моторный приступ с вовлечением мимической мускулатуры и отклонением головы назад. В ЭЭГ отмечено появление ритмичной тета-волновой активности, рисунок 2.

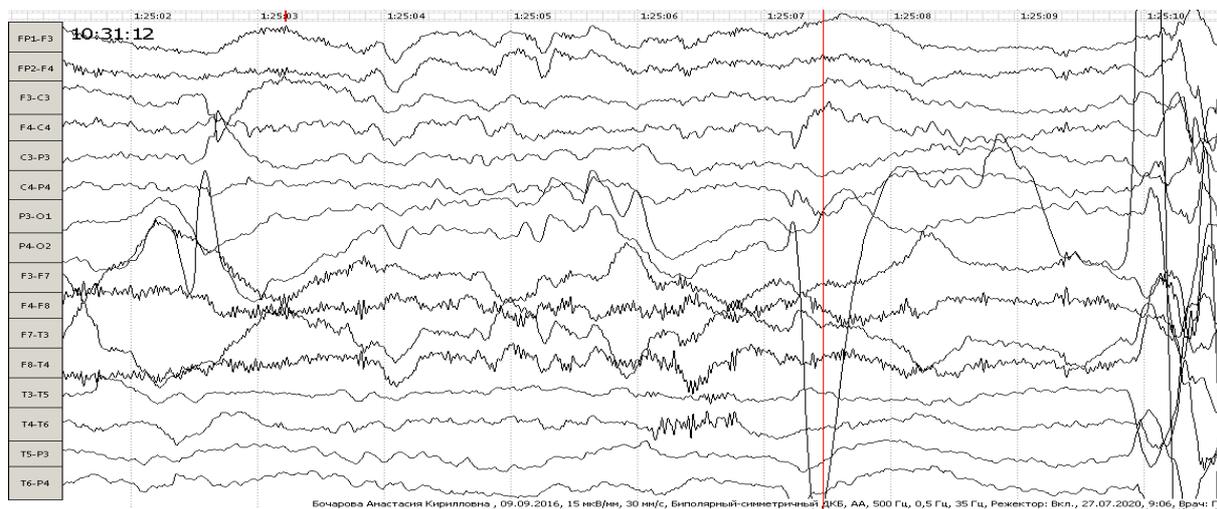


Рис. 2. Пациентка А., фрагмент записи дневного ВЭЭГМ.
Иктальная ЭЭГ - ритмичная тета-волновая активность.

Эпилептолог рекомендовал продолжить приём АЭП в прежней дозе в течение одного месяца после оперативного лечения ГЭР. Через 18 дней после операции приступы стали реже и короче. Через 1 месяц после оперативного лечения ГЭР приступы прекратились, мама ребёнка, в соответствии с рекомендациями специалиста, перестала давать АЭП.

Выводы. Таким образом, синдром Сандифера проявляется неврологической патологией (спастической кривошеей, дистоническими движениями тела) на фоне гастроэзофагальной рефлюксной болезни. Возможна ошибочная диагностика эпилепсии и органических гиперкинезов, что влечет неадекватную терапию. В представленном клиническом наблюдении, несмотря на регистрацию патологических изменений при проведении ВЭЭГМ, диагноз эпилепсии установлен ошибочно, что подтверждается прекращением приступов после проведения оперативного лечения ГЭР. Поэтому при проведении дифференциальной диагностики эпилепсии и синдрома Сандифера необходимо учитывать возможность регистрации клинически незначимых изменений на ЭЭГ в момент пароксизмального события.

Список литературы:

1. Липатова Л.В., Алексеева Т.М., Малышев С.М. Эпилепсия. Этиология, патоморфология, патогенез, клиника, диагностика, дифференциальный диагноз, принципы терапии. Эпилептический статус. Учебное пособие. СПб. Фолиант. 2019.
2. Белоусова Е.Д., Ермаков А.Ю., Дорофеева М.Ю., Харламов Д.А., Крапивкин А.И., Малиновская О.Н., Горчханова З.К., Пивоварова А.М., Айвазян С.О., Головтеев А.Л., Крайнева Л.С., Гаповнова О.В., Влодавец Д.В. Под редакцией Е.Д. Белоусовой, А.Ю. Ермакова. Дифференциальная диагностика эпилепсии. М. Пульс. 2007.
3. Айвазян С.О. Неэпилептические пароксизмальные состояния, имитирующие эпилепсию у детей. Эпилепсия и пароксизмальные состояния. 2016. 8 (4). 23-33.
4. Айвазян С.О. Хирургическое лечение эпилепсии у детей: показания, вопросы предхирургического обследования. М. 2017.
5. Рогова О.А., Таточенко В.К., Бакрадзе М.Д. Синдром Сандифера. Доктор.Ру. 2017. 15 (44). С. 30-34.
6. Fernandez–Alvarez E., Aicardi J. Movement Disorders in Children. MacKeith Press. 2001.
7. Kinsbourn M., Oxon D.M. Hiatus hernia with contortinos of the neck. Lancet. 1964. 1. 1058–1061.
8. Бобылова М.Ю., Козловский А.С., Полюдов С.А., Мызин А.В., Горицкая Т.А., Золотых М.Ю. Синдром Сандифера под «маской» кривошеи. Педиатрия. 2009. 87 (3). 144-147.
9. Cardi E., Corrado G., Cavaliere M., Capocaccia P., Matrunola M., Rea P. et al. Delayed gastric emptying in an infant with Sandifer syndrome. Ital. J. Gastroenterol. 1996. 28(9). 518–9.
10. Somjit S., Lee Y., Berkovic S.F, Harvey A.S. Sandifer syndrome misdiagnosed as refractory partial seizures in an adult. Epileptic Disord. 2004. 6 (1). 49–50.
11. Olguner M., Akgür F.M., Hakgüder G., Aktuğ T. Gastroesophageal reflux associated with dystonic movements: Sandifer's syndrome. Pediatr. Int. 1999. 41(3). 321–2.
12. Lisa De Y., Lynnette J. M. Sandifer's Syndrome in a Child With Asthma and Cerebral Palsy. South Med. J. 2000. 93 (10). 1019–1021.
13. Nalbantoglu B., Metin D.M., Nalbantoglu A. Sandifer's syndrome: a misdiagnosed and mysterious disorder. Iran. J. Pediatr. 2013. 23(6). 715–6.
14. Зенков Л.Р. Клиническая эпилептология, 2-е изд. М. Медицинское информационное агентство. 2010.
15. Карлов В.А. Эпилепсия у детей и взрослых, женщин и мужчин. М. Медицина. 2010.

References:

1. Lipatova L.V., Alekseeva T.M., Malyshev S.M. Epilepsy. Etiology, pathomorphology, pathogenesis, clinic, diagnosis, differential diagnosis, principles of therapy. Epileptic status: Textbook. SPb. Folio. 2019.in Russian.
2. Belousova E.D., Ermakov A.S., Dorofeeva M.Yu., Kharlamov D.A., Krapivin A.I., Malinovskaya O.N., Gorchkhanov Z.K., Pivovarov M.A., Ayvazyan S.O., Golovei L.A., Krainev, L.S., Gaponova O.V., Wlodawer D.V., edited by E.D. Belousova, A.Y. Ermakova. Differential diagnosis of epilepsy. M. Pulse. 2007.in Russian.

3. Ayvazyan S.O. Nonepileptic paroxysmal States imitating epilepsy in children. *Epilepsy and paroxysmal States*. 2016. 8 (4). 23-33.in Russian.
4. Ayvazyan S.O. Surgical treatment of epilepsy in children: indications, questions of pre-surgical examination. M. 2017.in Russian.
5. Rogova O.A., Tatochenko V.K., Bakradze M.D. Sandifer syndrome. *Doctor.Ru*. 2017. 15 (44). pp. 30-34.in Russian.
6. Fernandez–Alvarez E., Aicardi J. *Movement Disorders in Children*. MacKeith Press. 2001.
7. Kinsbourn M., Oxon D.M. Hiatus hernia with contortinos of the neek. *Lancet*. 1964. 1. 1058–1061.
8. Bobylova M.Yu., Kozlovsky A.S., Polyudov S.A., Myzin A.V., Goritskaya T.A., Zolotykh M. Yu. Sandifer Syndrome under the " mask " of the torticollis. *Pediatrics*. 2009. 87 (3). 144-147.in Russian.
9. Cardi E., Corrado G., Cavaliere M., Capocaccia P., Matrunola M., Rea P. et al. Delayed gastric emptying in an infant with Sandifer syndrome. *Ital. J. Gastroenterol*. 1996. 28(9). 518–519.
10. Somjit S., Lee Y., Berkovic S.F, Harvey A.S. Sandifer syndrome misdiagnosed as refractory partial seizures in an adult. *Epileptic Disord*. 2004. 6 (1). 49–50.
11. Olguner M., Akgür F.M., Hakgüder G., Aktuğ T. Gastroesophageal reflux associated with dystonic movements: Sandifer's syndrome. *Pediatr. Int*. 1999. 41(3). 321–322.
12. Lisa De Y., Lynnette J. M.. Sandifer’s Syndrome in a Child With Asthma and Cerebral Palsy. *South Med. J*. 2000. 93 (10). 1019–1021.
13. Nalbantoglu B., Metin D.M., Nalbantoglu A. Sandifer's syndrome: a misdiagnosed and mysterious disorder. *Iran. J. Pediatr*. 2013. 23(6). 715–716.
14. Zenkov L.R. *Clinical epileptology*, 2nd ed. Moscow: Medical information Agency. 2010.in Russian.
15. Karlov V.A. *Epilepsy in children and adults, women and men*. M.: Medicine. 2010.in Russian.