



СЛУЧАИ ИЗ ПРАКТИКИ CASE REPORT

Научная статья

УДК 616.16-007.64

DOI: <https://doi.org/10.25276/2410-1257-2022-2-72-76>

Редкий случай макулярной телеангиэктазии 1-го типа у ребенка

Л.А. Минязева, Г.М. Казакбаева

Уфимский НИИ глазных болезней АН РБ, Уфа

РЕФЕРАТ

Макулярная телеангиэктазия 1-го типа обычно характеризуется медленно прогрессирующим снижением остроты зрения на 3–4-м десятилетии жизни, тем не менее данное заболевание может быть диагностировано у пациентов молодого возраста. **Цель.** Представить редкий клинический случай макулярной телеангиэктазии 1-го типа у ребенка 8 лет. **Материал и методы.** При проведении скринингового обследования в одной из школ г. Уфы у школьника 8 лет было выявлено низкое зрение левого глаза. Обследование включало стандартный офтальмологический осмотр, а также проведение оптической когерентной томографии (ОКТ) (Triton Topcon, Nidek Mirante, Япония). Фоторегистрацию глазного дна проводили на фундус-камере Visucam (Zeiss, Германия). **Результаты.** Офтальмоскопически у ребенка с макулярной телеангиэктазией 1-го типа в макулярной зоне локализовались микроаневризмы, сопровождающиеся развитием макулярного отека. По данным ОКТ и ОКТ с лазерной сканирующей офтальмоскопией отмечались патологические изменения структур сетчатки в виде множественных кистозных полостей нейроэпителия, отложений мелких гиперрефлективных включений, интравитреальных аневризматических структур, нарушения микроангиоархитектоники и зоны гипоперфузии. **Заключение.** Представленный нами клинический случай демонстрирует у ребенка редкую форму макулярной телеангиэктазии 1-го типа, осложненную кистозным макулярным отеком. Для диагностики и мониторинга данного заболевания оптимальным является применение оптической когерентной томографии с ангиорежимом, что особенно важно при диагностике заболевания у детей.

Ключевые слова: макулярные телеангиэктазии, ОКТ, макулярный отек, ребенок

Для цитирования: Минязева Л.А., Казакбаева Г.М. Редкий случай макулярной телеангиэктазии 1-го типа у ребенка. Точка зрения. Восток – Запад. 2022;2: 72–76. <https://doi.org/10.25276/2410-1257-2022-2-72-76>

Автор, ответственный за переписку: Лиана Альбертовна Минязева, doctor.garipova@yandex.ru

Original article

A rare case of macular telangiectasia in a child

L.A. Miniyeva, G.M. Kazakbaeva

Ufa Eye Research Institute, Ufa, Russian Federation

ABSTRACT

Macular telangiectasia type 1 is usually characterized by a slowly progressive decrease in visual acuity in the 3–4 decade of life. Although MacTel usually manifests with a slowly progressive decrease in visual acuity in the fifth to seventh decades of life, younger patients may occasionally be diagnosed with the disease. **Purpose.** To present a clinical case of macular telangiectasia type 1 in an 8-year-old child. **Material and methods.** During a screening examination in one of the schools in the Kirovsky district of Ufa, an 8-year-old child was diagnosed with low vision in his left eye. The examination included a standard ophthalmological examination, as well as optical coherence tomography technology (Triton Topcon, Nidek Mirante, Japan). Fundus photography was performed on a Visucam fundus camera (Zeiss, Germany). **Results.** The left eye fundus showed microaneurysms, macular edema in the macular zone. According to OCT and OCT with laser scanning ophthalmoscopy, pathological changes in retinal structures were noted in the form of multiple cystic cavities of the neuroepithelium, deposits of small hyperreflective inclusions, intraretinal aneurysmal structures and violations of microangiarchitectonics and hypoperfusion zones. **Conclusion.** The clinical case demonstrates a rare form of macular telangiectasia type 1 in a child, complicated by cystic macular edema. For the diagnosis and monitoring of this disease, the use of optical coherence tomography with angio-mode is optimal, which is especially important when used in children.

Key words: macular telangiectasia, OCT, macular edema, child

For quoting: Miniyeva L.A., Kazakbaeva G.M. A rare case of macular telangiectasia in a child. Point of view. East – West. 2022;2: 72–76. <https://doi.org/10.25276/2410-1257-2022-2-72-76>

Corresponding author: Liana A. Miniyeva, doctor.garipova@yandex.ru

АКТУАЛЬНОСТЬ

Макулярные телеангиэктазии (MacTel) – редкая патология сетчатки, характерным офтальмоскопическим признаком которой является дилатация капилляров макулярной зоны [1]. Они относятся к нейродегенеративным заболеваниям и характеризуются поражением клеток Мюллера и сосудов, утратой клеток наружных и внутренних слоев сетчатки. Это приводит к кистозным изменениям в фовеолярной области, что на поздних стадиях может привести к формированию разрыва [2].

В большинстве случаев этиология макулярной телеангиэктазии носит идиопатический характер. Данному состоянию также могут сопутствовать различные сосудистые и воспалительные заболевания глазного дна, такие как диабетическая ретинопатия, гипертоническая ангиоретинопатия, окклюзия вен сетчатки и т.д. [3].

Впервые термин «ретиальные телеангиэктазии» был предложен в 1808 г. К. Графе. Данное понятие он связывал с изменениями микроциркуляторного русла сосудов сетчатки, в частности, с неравномерной дилатацией и несостоятельностью сосудов. В 1968 г. J. Gass и R. Oyakawa ввели термин «идиопатические юкстафовеолярные ретиальные телеангиэктазии» и разработали первую классификацию, в основу которой были положены данные офтальмоскопии и флюоресцентной ангиографии. В 1993 г. J. Gass и B. Blodi обновили эту классификацию, разделив идиопатические юкстафовеолярные телеангиэктазии на 3 отдельные группы с двумя подгруппами (А и В) в каждой, на основе демографических критериев и клинической картины [4–6].

Для MacTel 1-го типа характерно одностороннее поражение с серозной экссудацией макулы и частотой встречаемости 0,01%, преимущественно у лиц мужского пола в возрасте 35–40 лет. Данное состояние следует дифференцировать с болезнью Коатса. Из-за дегенеративных изменений сетчатки на фоне длительно существующего отека макулы или за счет последующих отложений твердых экссудатов в центральной зоне у пациентов происходит снижение зрительных функций [7]. Надо отметить, что сведений о наличии у детей данного заболевания в научной литературе мы не встретили.

MacTel 2-го типа наблюдаются в офтальмологической практике одинаково часто как у мужчин, так и у женщин, начиная с 4-й декады жизни, имеют двусторонний характер поражения с минимальной ретиальной экссудацией на глазном дне. Причина заболевания до конца не изучена и не известна. Некоторые исследователи связывают причину развития MacTel 2-го типа с сосудистыми изменениями, другие считают их первичным нейродегенеративным заболеванием с вторичным вовлечением в процесс сосудов сетчатки. Данная форма сопровождается значительным снижением зрения за счет

формирования осложнений в виде макулярного разрыва, атрофии сетчатки, субретинальной неоваскуляризации и т.д. [4, 8, 9]. Следует отметить, что на ранних стадиях заболевания диагностика MacTel 2-го типа вызывает значительные трудности, так как пациенты не предъявляют субъективных жалоб, а изменения, выявляемые при обследовании, минимальны.

В научной литературе встречаются также данные о существовании 3-го типа MacTel в виде окклюзии и телеангиэктазии в капиллярной сети фовеа одного или обоих глаз, возникающей, как правило, в связи с сопутствующей неврологической патологией [5].

Основными инструментальными методами диагностики MacTel являются оптическая когерентная томография (ОКТ) сетчатки, в том числе с ангиорежимом, и флюоресцентная ангиография. Для лечения MacTel на сегодняшний день применяются следующие методы: лазерная коагуляция сетчатки, фотодинамическая терапия, интравитреальные инъекции глюкокортикоидов и анти-VEGF-терапия [10–13].

ЦЕЛЬ

Представить редкий клинический случай макулярной телеангиэктазии 1-го типа у ребенка 8 лет.

МАТЕРИАЛ И МЕТОДЫ

При проведении скринингового обследования в одной из школ г. Уфы у ребенка 8 лет было выявлено низкое зрение одного (левого) глаза. Из анамнеза: ребенок от первой беременности, родился в 40 недель, беременность и роды протекали без осложнений. Снижение зрения родители ребенка отмечают и связывают с вакцинацией в 2-летнем возрасте. Наблюдался у окулиста по месту жительства с диагнозом: OS – Гиперметропия слабой степени. Частичная атрофия диска зрительного нерва. С 4-летнего возраста пользуется очковой гиперметрической коррекцией (OS sph +1,0 дптр cyl +0,5 дптр ax 90).

Офтальмологическое обследование включало визометрию с определением максимальной скорректированной остроты зрения (МКОЗ), авторефрактометрию, тонометрию, пахиметрию (Tonoref Nidek, Япония), ОКТ (Triton Topcon, Япония), в т.ч. с лазерной ангиографией (Nidek Mirante, Япония). Фоторегистрацию глазного дна проводили на фундус-камере Visucam (Zeiss, Германия).

РЕЗУЛЬТАТЫ И ОБСУЖДЕНИЕ

Острота зрения правого глаза составила 1,0. Данные авторефрактометрии: sph +0,50 дптр cyl –1,00 дптр ax 178°. Результаты тонометрии и пахиметрии – 17,0 мм

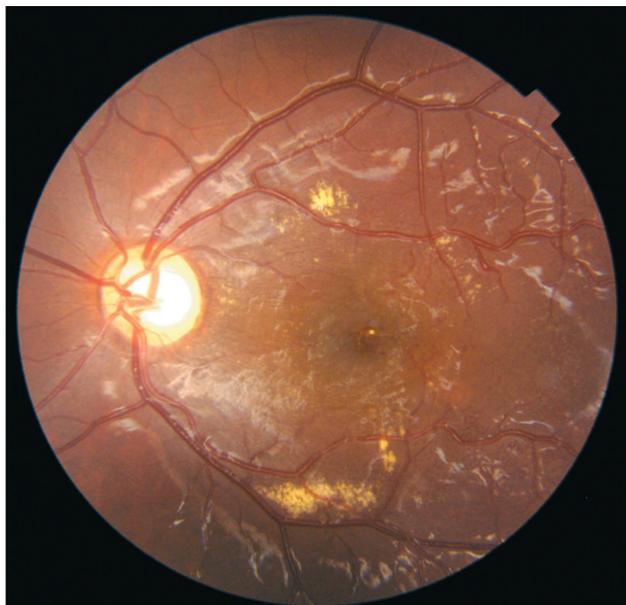


Рис. 1. Фото глазного дна левого глаза ребенка 8 лет с макулярной телеангиэктазией 1-го типа. Диск зрительного нерва бледно-розовый, контуры его четкие. В макулярной зоне определяется округлой формы, незначительно проминирующий кистовидный очаг светло-серого цвета. Вокруг диска зрительного нерва на средней периферии во внутреннем и наружном сегментах сетчатки имеются множественные бело-желтые округлые очажки, с четкими границами, слегка возвышающиеся над уровнем сетчатки, единичные геморрагии и множественные телеангиэктазии

Fig. 1. Fundus photograph of the left eye in an 8-year-old child with macular telangiectasia type 1. The optic nerve head is pale pink, the contours are clear. In the macular zone, a light gray rounded cyst-shaped slightly protruding focus is determined. Around the ONH on the middle periphery in the inner and outer segments of the retina, there are white-yellow rounded foci, with clear boundaries, slightly rising above the level of the retina, single hemorrhages and multiple telangiectasia

рт.ст. и 564 нм соответственно. Передний отрезок без патологических изменений, оптические среды прозрачные. При офтальмоскопии глазного дна и проведении ОКТ правого глаза патологических изменений обнаружено не было.

Острота зрения левого глаза составила 0,1 (не корригирует). Показатели авторефрактометрии: sph +2,75 дптр cyl –1,25 дптр ax 173°. Данные внутриглазного давления (ВГД) и пахиметрии составили соответственно 18,0 мм рт.ст. и 567 нм. Объективно: глаз спокойный, передний отрезок без патологических изменений, оптические среды прозрачные. Клиническая картина характеризовалась наличием множественных телеангиэктазий в центральной зоне сетчатки. Вокруг диска зрительного нерва (ДЗН), на средней периферии во внутреннем и наружном сегментах сетчатки имелись множественные бело-желтые округлые очажки, с четкими границами, слегка возвышающиеся над уровнем сетчатки, визуализировались единичные геморрагии. В макулярной зоне определялся округлой формы, незначительно проминирующий кистовидный очаг светло-серого цвета (рис. 1).

При проведении ОКТ левого глаза (рис. 2) были выявлены деформация профиля фoveальной ямки за счет кистовидного отека макулы, множественные кистозные полости нейроретиниума, отложение мелких гиперрефлективных включений, в некоторых срезах прослеживались интратретиальные аневризматические структуры. Высота отека макулы достигала 445 мкм.

Для уточнения диагноза и проведения дифференциальной диагностики были проведены лабораторные тесты и определены антитела к инфекциям, в результате которых были обнаружены IgG к вирусам Эпштейна–Барр и цитомегаловирусу, что не исключало и возможную сопутствующую воспалительную патологию глазного дна левого глаза.

На основании жалоб, анамнеза, клинических и инструментальных методов обследования был установлен диагноз: OS – Макулярная телеангиэктазия 1-го типа, осложненная кистовидным макулярным отеком. Ребенку была рекомендована лазерная коагуляция сетчатки, противовоспалительная (бромфенак, дексаметазон – в каплях), противоотечная (инстилляции дорзоламида) и противовирусная (внутри – валцикловир в таблетках) терапия.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Представленный нами клинический случай демонстрирует у ребенка редкую форму макулярной телеангиэктазии 1-го типа, осложненную кистовидным макулярным отеком. Для диагностики и мониторинга данного заболевания оптимальным является применение оптической когерентной томографии с ангиорежимом, что особенно важно, учитывая ее неинвазивный характер, при использовании у детей.

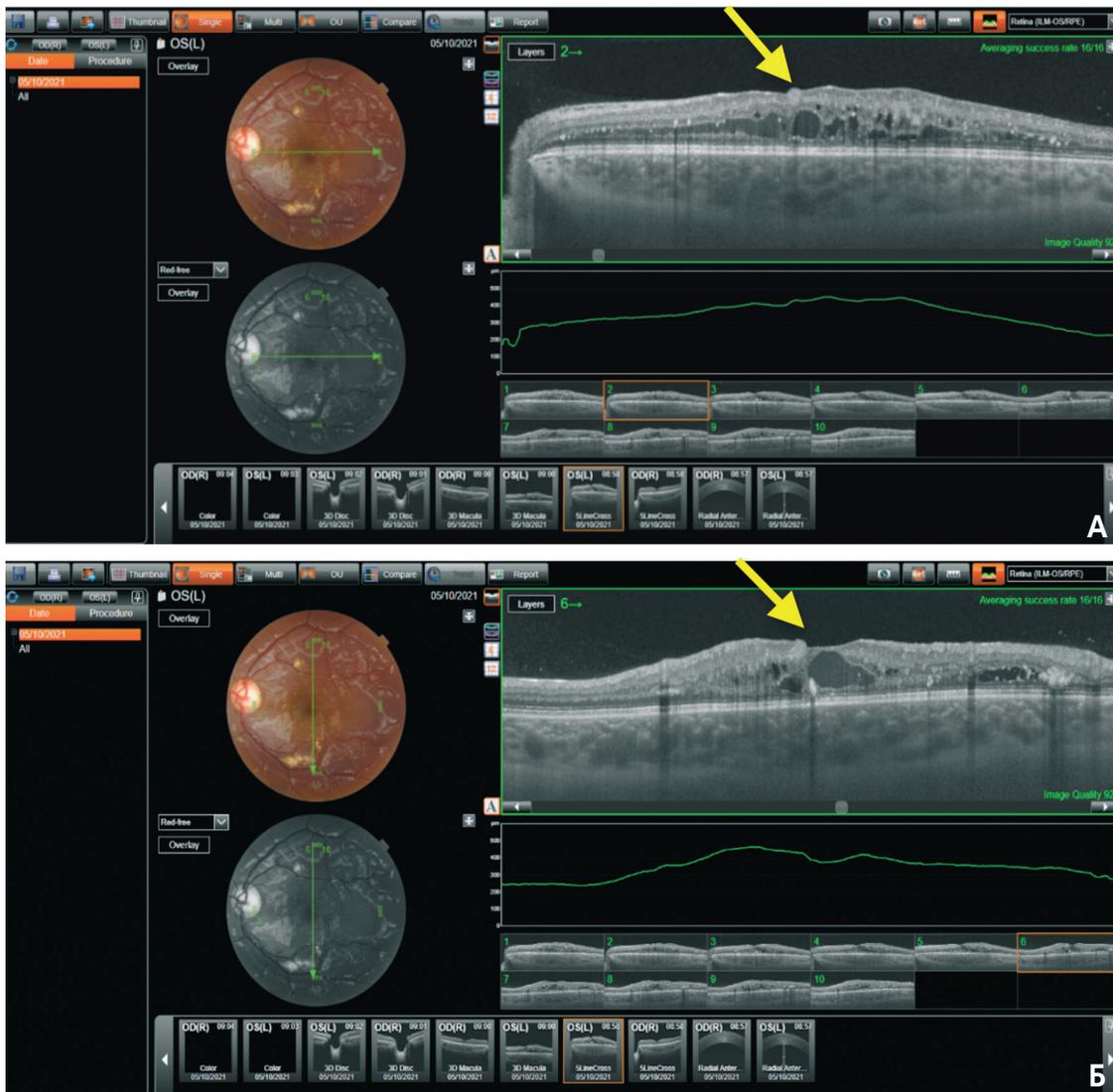


Рис. 2. ОКТ в горизонтальном (А) и вертикальном (Б) срезе у пациента 8 лет с макулярной телеангиэктазией 1-го типа. Желтыми стрелками указаны микроаневризмы. Отмечаются деформация профиля фовеальной ямки за счет кистозидного отека нейроэпителия (445 мкм), множественные кистозные полости нейроэпителия, отложение мелких гиперрефлективных включений, в некоторых срезах прослеживаются интравитреальные аневризматические структуры

Fig. 2. OCT in horizontal (A) and vertical (B) section sin an 8-year-old patient with macular telangiectasia type 1. The yellow arrows indicate microaneurysms. There is a deformation of the foveal fossa profile due to cyst-like edema of the neuroepithelium (445 microns), multiple cystic cavities of the neuroepithelium, deposition of small hyperreflective inclusions, intraretinal aneurysmal structures are traced in some sections

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

1. Nowilaty SR, Al-Shamsi HN, Al-Khars W. Idiopathic juxtafoveolar retinal telangiectasis: a current review. Middle East Afr J Ophthalmol. 2010;17: 224–241.
2. Powner MB, Gillies MC, Tretiaeh M, Scott A, Guymer RH, Hageman GS, Fruttiger M. Perifoveal müller cell depletion in a case of macular telangiectasia type 2. Ophthalmology. 2010;117(12): 2407–2416. doi: 10.1016/j.ophtha.2010.04.001
3. Baz Ö, Yılmaz I, Alagöz C, Demircan A, Perente I, Özkaya A, Taşkapılı M. Efficacy of Intravitreal Bevacizumab in Treatment of

- Proliferative Type 2 Idiopathic Juxtafoveal Telangiectasia. Turk J Ophthalmol. 2017;47(3): 144–148. doi: 10.4274/tjo.04874
4. Wu L, Evans T, Arevalo JF. Idiopathic macular telangiectasia type 2 (idiopathic juxtafoveal retinal telangiectasis type 2A, Mac Tel 2). Surv Ophthalmol. 2013;58: 536–559.
 5. Gass J, Blodi B. Idiopathic juxtafoveal retinal telangiectasis: update of classification and follow-up study. Ophthalmology. 1993;100(10): 1536–1546.
 6. Gass J, Oyakawa R. Idiopathic juxtafoveal retinal telangiectasis. Arch Ophthalmol. 1982;100(5): 769–780.
 7. Терещенко А.В., Трифаненкова И.Г., Ерохина Е.В. Возможности ОСТ-ангиографии в диагностике макулярных телеангиэктазий 2-го типа. Практическая медицина. 2017;9(110): 227–234. [Tereshchenko AV, Trifanenkova IG, Erokhina EV. Vozmozhnosti OST-angiografii v diagnostike makulyarnykh teleangiektaziy 2-go tipa Prakticheskaya meditsina. 2017;9(110): 227-234. (In Russ.)]
 8. Wong WT, Forooghian F, Majumdar Z, et. al. Fundus autofluorescence in type 2 idiopathic macular telangiectasia: correlation with optical coherence tomography and microperimetry. Am J Ophthalmol. 2009;148(4): 573–583.
 9. Sallo FB, Leung I, Clemons TE, et. al. Multimodal imaging in type 2 idiopathic macular telangiectasia. Retina. 2015;35: 742–749.
 10. Park DW, Schatz H, McDonald HR, Johnson RN. Grid laser photocoagulation for macular edema in bilateral juxtafoveal telangiectasis. Ophthalmology. 1997;104(11): 1838–1846.
 11. Alldredge CD, Garretson BR. Intravitreal triamcinolone for the treatment of idiopathic juxtafoveal telangiectasis. Retina. 2003;23: 113–116.
 12. Raza S, Toklu Y, Anayol MA, Şimşek Ş, Özkan B, Altıntaş AK. Comparison between efficacy of triamcinolone acetamide and bevacizumab in a case with type 2A idiopathic parafoveal telangiectasia. Turk J Ophthalmol. 2011;41(1): 6–9.
 13. Roller AB, Folk JC, Patel NM, Boldt HC, Russell SR, Abramoff MD, Mahajan VB. Intravitreal bevacizumab for treatment of proliferative and nonproliferative type 2 idiopathic macular telangiectasia. Retina. 2011;31: 1848–1855.

Информация об авторах

Ляна Альбертовна Минязева – младший научный сотрудник отделения офтальмологической и медицинской эпидемиологии, doctor.garipova@yandex.ru, <https://orcid/0000-0003-4338-8271>

Гюлли Мухаррамовна Казакбаева – старший научный сотрудник отделения офтальмологической и медицинской эпидемиологии, gyulli.kazakbaeva@gmail.com, <https://orcid/0000-0002-0569-1264>

Information about the authors

Liana A. Miniyeva – junior researcher of ophthalmic and medical epidemiology department, doctor.garipova@yandex.ru, <https://orcid/0000-0003-4338-8271>

Gyulli M. Kazakbaeva – senior researcher of ophthalmic and medical epidemiology department, gyulli.kazakbaeva@gmail.com, <https://orcid/0000-0002-0569-1264>

Вклад авторов в работу:

Л.А. Минязева: сбор, анализ и обработка материала, написание, редактирование.

Г.М. Казакбаева: существенный вклад в концепцию и дизайн работы, окончательное утверждение версии, подлежащей публикации.

Authors' contribution:

L.A. Miniyeva: collection, analysis and processing of material, writing, editing.

G.M. Kazakbaeva: significant contribution to the concept and design of the work, final approval of the version to be published.

Финансирование: Авторы не получали конкретный грант на это исследование от какого-либо финансирующего агентства в государственном, коммерческом и некоммерческом секторах.

Согласие пациента на публикацию: Письменного согласия на публикацию этого материала получено не было. Он не содержит никакой личной идентифицирующей информации.

Конфликт интересов: Отсутствует.

Financial transparency: Authors have no financial interest in the submitted materials or methods.

Patient consent for publication: No written consent was obtained for the publication of this material. It does not contain any personally identifying information.

Conflict of interest: None.

Поступила: 01.02.2022
Переработана: 23.02.2022
Принята к печати: 01.03.2022
Originally received: 01.02.2022
Final revision: 23.02.2022
Accepted: 01.03.2022