

СИНДРОМ ПЕДЖЕТА–ШРЕТТЕРА У ПАЦИЕНТКИ, ЗАНИМАЮЩЕЙСЯ ВОДНЫМИ ВИДАМИ СПОРТА

С. Р. Родионовская ✉, Г. Г. Торосян, Н. В. Аксенова

Федеральный научный-клинический центр детей и подростков Федерального медико-биологического агентства, Москва, Россия

Представлен случай синдрома Педжета–Шреттера у пациентки, занимающейся водным поло. Развитие заболевания отмечено на фоне интенсивных физических нагрузок. Тактика ведения пациентки была ограничена консервативным методом лечения с применением двухнедельного курса гепарина и последующими курсами диосмина и сулодексида. Рассмотрены вопросы высокого риска посттромбофлебитического синдрома у данной категории пациентов, целесообразности применения хирургических методов лечения.

Ключевые слова: тромбоз, тромболизис, синдром Педжета–Шреттера, спорт

Вклад авторов: С. Р. Родионовская — общее руководство, написание и редактирование рукописи; Г. Г. Торосян — сбор информации, оформление списка литературы; Н. В. Аксенова — сбор информации.

Соблюдение этических стандартов: пациентка подписала добровольное информированное согласие на участие в исследовании.

✉ **Для корреспонденции:** Светлана Рафаиловна Родионовская
ул. Москворечье, д. 20, г. Москва, 115409; rodionovskaya@mail.ru

Статья получена: 15.01.2021 **Статья принята к печати:** 17.02.2021 **Опубликована онлайн:** 13.03.2021

DOI: 10.47183/mes.2021.005

PAGET-SCHROETTER SYNDROME IN FEMALE WATER POLO PLAYER

Rodionovskaya SR ✉, Torosian GG, Aksenova NV

Federal Research and Clinical Center for Children and Adolescents, FMBA of Russia, Moscow, Russia

This article describes a case of Paget-Schroetter syndrome in a female water polo player. The condition was associated with strenuous exercise. The initial treatment strategy was limited to a 14-day heparin regimen followed by a course of diosmin and sulodexide. The article discusses the high risk of post-thrombotic syndrome in this cohort of patients and the rationale for a surgical intervention.

Keywords: thrombosis, thrombolysis, Paget-Schroetter syndrome, sports

Author contribution: Rodionovskaya SR supervised the study, wrote and edited the manuscript; Torosian GG collected data for the study and compiled the reference list; Aksenova NV collected data for the study.

Compliance with ethical standards: the patient gave voluntary informed consent to participate in the study.

✉ **Correspondence should be addressed:** Svetlana R. Rodionovskaya
Moskvorechye, 20, Moscow, 115409; rodionovskaya@mail.ru

Received: 15.01.2021 **Accepted:** 17.02.2021 **Published online:** 13.03.2021

DOI: 10.47183/mes.2021.005

Сосудистые травмы верхних конечностей — редкая патология у спортсменов, однако экстремальные нагрузки в ряде спортивных дисциплин (бейсбол, водное поло, хоккей, плавание) предрасполагают к повышенному риску венозного тромбоза верхних конечностей или «тромбоза усилий» — синдрому Педжета–Шреттера (СПШ) [1].

СПШ включает тромбоз подмышечно-подключичной вены, возникающий вследствие напряженной и повторяющейся физической активности верхних конечностей. Заболевание было описано французским патологоанатомом Ж. Б. Крювелье в 1816 г., позже Д. Педжет в 1875 г. представил более подробный отчет клинической картины, а в 1894 г. Л. Шреттер был первым, кто определил сосудистую травму от напряжения мышц как потенциальный этиологический фактор. В отечественной литературе данная патология описана А. Я. Пытель в 1934 г. и названа «тромбозом от усилий».

Патогенез заболевания связан с чрезмерной нагрузкой на подключичную вену, приводящей к микротравме эндотелия и последующей активации каскада коагуляционных нарушений вследствие чрезмерной внутренней ротации, гипераддукции и отведения плеча. Гипертрофия мускулатуры спортсменов нередко ведет к сужению промежутка между ключицей и I ребром, увеличивая степень воздействия на расположенную в нем вену. В свою очередь, хроническая травматизация вены и ее притоков является причиной развития асептического

(пристеночного или облитерирующего) флебита, нередко с пристеночным тромбообразованием [1, 2].

Описание клинического случая

Пациентка Л., 17 лет, профессионально занимающаяся в течение 10 лет водным поло (с ежедневными физическими нагрузками до 6 ч в день), была госпитализирована в ФНКЦ детей и подростков ФМБА 03.07.2019 с жалобами на отек левой верхней конечности в области плеча, увеличивающийся на фоне физической нагрузки.

Из анамнеза известно, что пациентка заболела остро 30.08.2018, когда во время соревнований появился отек левого плеча с распространением на область грудной клетки, появились выраженные боли в конечности, ограничение движений, накануне отмечалось покалывание в области плеча. В течение последующих пяти дней пациентка продолжала участие в соревнованиях, принимала нестероидные противовоспалительные средства (НПВС), которые не имели существенного эффекта. После выполнения ультразвукового исследования мягких тканей был заподозрен тромбоз подмышечной вены. Девушку госпитализировали в отделение сосудистой хирургии по месту жительства с 04.09.2018 по 14.09.2018, где был установлен диагноз «острый тромбоз глубоких вен левой верхней конечности». При ультразвуковом дуплексном сканировании вен верхних конечностей (УЗДГ) 04.09.2018

были выявлены признаки тромбоза подмышечной вены, подключичной, плечевой, вен предплечья, без признаков реканализации. В стационаре проводили антикоагулянтную терапию (доза, режим и сроки введения препарата в выписном эпикризе не указаны); была выявлена положительная динамика клинического статуса в виде уменьшения отека левого плеча. При повторном УЗИ 10.09.2018 обнаружены УЗ-признаки начальной стадии реканализации тромба. Пациентку обследовали на наличие генетических тромбофилий и выявили полиморфизмы в гене фибриногена (C10034NT) и в гене активатора плазминогена (PAI-1). После улучшения состояния пациентку выписали, назначив диосмин + гесперидин (1000 мг/сутки), ношение компрессионного трикотажа и наблюдение у сосудистого хирурга, рекомендовавшего в сентябре 2018 г. пройти курс антикоагулянтной терапии: сулодексид 600 ЛЕ (1 ампула) парентерально внутримышечно в течение 10 дней, затем продолжить прием препарата перорально в дозе 500 ЛЕ/сутки. Терапию сулодексидом проходила непостоянно, с перерывами. Продолжала тренировки в режиме 2 ч в день.

В июне 2019 г. после очередных спортивных сборов, на фоне окончания приема сулодексида было отмечено ухудшение состояния, в виде нарастания отека и болезненности в левом плече. Пациентка направлена в стационар с целью обследования и исключения ретромбоза на фоне тромбофилии, а также принятия решения вопроса о подборе антикоагулянтной терапии.

Ранний анамнез без особенностей. Наследственность по тромбозу не отягощена. При осмотре левая верхняя конечность имеет физиологическую окраску, по сравнению с контрлатеральной конечностью — умеренный отек плеча (разница в диаметре на 1–1,5 см), сглаженность подключичной ямки слева, пульсация на периферических артериях рук сохранена, симметричная. Была проведена дифференциальная диагностика для исключения вторичного генеза тромбоза на фоне ревматических заболеваний (системной красной волчанки, антифосфолипидного синдрома), наследственной тромбофилии, синдрома дисплазии соединительной ткани.

По результатам триплексного сканирования вен верхних конечностей от 04.07.2019, признаки тромбоза подкожных вен и глубоких вен обеих верхних конечностей, а также значимая клапанная недостаточность подкожных вен и глубоких вен обеих верхних конечностей на момент исследования не выявлены. Показатели коагулограммы — в пределах референсных значений: Д-димер — 451,0 нг/мл (норма: < 500 нг/мл); АЧТВ — 29,2 с (24,6–31,2 с); фибриноген — 3,1 г/л (1,70–4,20 г/л), антитромбин III — 126% (75–125%); протромбин по Квику — 100,6% (70–130%); тромбиновое время — 20,3 с (15,8–24,9 с); МНО — 0,99; волчаночный антикоагулянт — 41,9 с (30,4–45,3 с). Физиологические антикоагулянты: протеин S — 59,1% (> 56,10%) и протейн С — 130,0% (70,0–140,0%); гомоцистеин — 7,5 мкмоль/л (5,0–12,0 мкмоль/л). Активность аутоиммунитета не выявлена: антинуклеарные антитела (АНФ на НЕР-2) — 1 : 80 (норма: < 1 : 160); АТ к двуспиральной ДНК — 1,9 МЕ/мл (0–20); АТ к кардиолипину IgG — 1,90 МЕ/мл (норма: < 20); АТ к кардиолипину IgM — не обнаружено; АТ к β_2 -гликопротеину IgG — 2,30 Ед/мл (норма: < 5,0); АТ к β_2 -гликопротеину IgM — не обнаружены. Проведена МРТ шейного отдела позвоночника, исключены анатомические особенности, способствующие повреждению подключичной вены.

Анализ клинико-анамнестических данных (развитие симптомокомплекса острого тромбоза вен левой верхней конечности у пациентки, занимающейся профессиональным спортом, на фоне высокой физической нагрузки и прибавки мышечной массы верхнего плечевого пояса), а также исключение вторичного (аутоиммунного) генеза тромбоза позволили верифицировать диагноз «синдром Педжета–Шреттера». Возобновлена терапия сулодексидом 500 ЛЕ/сутки с ангиопротективной и антитромботической целью, рекомендовано дальнейшее наблюдение сосудистого хирурга. Занятия спортом разрешены.

Обсуждение клинического случая

Вторичный тромбоз глубоких вен (ТГВ) верхних конечностей — достаточно хорошо известный клинический синдром. Наиболее часто он ассоциирован с имплантацией кардиостимуляторов, использованием центральных венозных катетеров, онкопатологией. Первичная группа ТГВ объединяет СПШ и синдром грудного выхода. В целом, частота возникновения ТГВ составляет 1 случай на 1000 человек в год, на долю тромбозов верхних конечностей приходится 4–10%, из которых 1/5 часть составляет СПШ [2, 3]. Ранняя диагностика и адекватное лечение СПШ позволяют избежать развития жизнеугрожающего осложнения — тромбоэмболии легочной артерии (ТЭЛА) и сократить сроки восстановления пациента. По данным метаанализа, 123 случая ТГВ верхних конечностей наиболее часто встречались у спортсменов, занимающихся бейсболом и тяжелой атлетикой (26,8 и 19% соответственно), в 26,7% случаев возникли осложнения в виде ТЭЛА [4].

В настоящее время диагностика ТГВ основана на известном комплексе клинических и инструментальных исследований. Острое развитие у пациентки отека и боли верхней конечности, с иррадиацией в подмышечную ямку, сопровождавшееся локальными проявлениями в виде гиперемии, дали основание к постановке диагноза «острый ТГВ левой верхней конечности», что было подтверждено данными УЗИ. При госпитализации через 10 месяцев от дебюта заболевания в ФНКЦ детей и подростков ФМБА нами были определены следующие критерии и потенциальные факторы риска тромбоза: профессиональные занятия спортом, водным поло, увеличение количества поездок на соревнования (авиаперелеты), повторяющиеся травматические эпизоды во время игры, наращивания мышечной массы плечевого пояса, что позволило диагностировать СПШ. При дальнейшем обследовании были исключены такие факторы риска, как врожденные аномалии (добавочное шейное ребро), аутоиммунные заболевания, приводящие к высокому риску развития тромбоза, наследственность по тромбофилии.

Согласно Российским клиническим рекомендациям по диагностике, лечению и профилактике венозных тромбоэмболических осложнений (ВТЭО), поиск врожденных тромбофилий следует проводить у молодых больных (в возрасте до 50 лет) в случаях, когда не удалось установить факторы, непосредственно спровоцировавшие тромбоз, а также при рецидивирующих ВТЭО [5]. Факт выявления у пациентки полиморфизма генов фибриногена (C10034NT) и активатора плазминогена (PAI-1) требует динамического наблюдения и ассоциируется с риском возникновения тромботических осложнений.

Основное значение в диагностике ТГВ имеют инструментальные методы [2]. Благодаря доступности, портативности и низкой стоимости исследования предпочтительным первоначальным диагностическим тестом является УЗДГ. Контрастная венография позволяет визуализировать весь просвет венозного русла верхней конечности, определить зоны компрессии стенки сосуда костными структурами, а также выявить рубцово-стенотическое поражение подключично-подмышечного сегмента [6, 7]. МРТ обладает самой высокой чувствительностью (100%) и специфичностью (97%) среди всех неинвазивных методов диагностики. Хотя венография не является необходимой для диагностики, ее почти всегда выполняют как часть мультимодальной стратегии лечения для проведения катетер-направленного тромболиза и планирования операции по декомпрессии [6].

На сегодняшний день нет единого мнения о стандартах лечения СПШ ввиду относительной редкости заболевания, недостаточной осведомленности и отсутствия больших рандомизированных исследований [8]. Тактика ведения пациентки по месту жительства (двухнедельный курс гепаринотерапии, с последующим переводом на прием диосмина + гесперидина 1000 мг/сутки) не совпадает с рекомендациями, согласно которым при консервативном подходе целесообразно применение антикоагулянтной терапии сроком не менее трех месяцев [5]. Отсутствие адекватной антикоагулянтной терапии могло послужить фактором риска формирования посттромботического синдрома.

К осложнениям СПШ относят ТЭЛА, рецидивирующий тромбоз и наиболее часто (до 45%) возникающий посттромботический синдром [9], что послужило основанием для разработки «активной» стратегии лечения, включающей тромболизис, тромбэктомия, чрескожную и хирургическую венопластику, венозное шунтирование и стентирование. Более агрессивный подход, а именно тромболизис и хирургическое вмешательство (катетер-направленный

тромболизис), превосходит консервативную тактику, если его проводить в течение двух недель от развития острого тромбоза. Эффективность раннего назначения катетер-направленного тромболиза составляет, по мнению ряда авторов, 75–84%, оно существенно снижает риски развития посттромботической болезни и инвалидизации пациентов [10, 11].

Анализируя представленное клиническое наблюдение, мы не можем согласиться с позицией сосудистых хирургов, выбравших тактику непродолжительной антикоагулянтной монотерапии. Так, в одной из работ [1] были проанализированы результаты лечения 41 спортсмена с ТГВ верхних конечностей (44% женщин, средний возраст — 19 лет), в том числе 5 игроков в водное поло. У 14 пациентов был диагностирован СПШ, все они проходили лечение, включающее тромболизис/антикоагуляционную терапию с последующей резекцией первого ребра. Данная тактика была весьма успешной: возвращение в спорт было достигнуто у 93% пациентов, в среднем через 4,6 месяца после оперативного лечения; рецидив симптомов отмечен у двух спортсменов (14%).

ВЫВОДЫ

Повышение осведомленности среди врачей первичной и неотложной медицинской помощи об особенностях тромбозов у данной категории пациентов обеспечит раннее выявление и своевременное оказание специализированной помощи (направление к сосудистому и торакальному хирургу) с проведением тромболиза и хирургического вмешательства. Дальнейшие исследования должны быть направлены на определение преимуществ тромболитической терапии у пациентов с отсроченной диагностикой, выявление факторов, приводящих к неэффективности тромболиза и необходимости хирургического вмешательства.

Литература

- Chandra V, Little C, Lee JT. Thoracic outlet syndrome in high-performance athletes. *J Vasc Surg.* 2014 Oct; 60 (4): 1012–7; DOI: 10.1016/j.jvs.2014.04.013. Epub 2014 May 14. PMID: 24835692.
- Hangge P, Rotellini-Coltvet L, Deipolyi AR, Albadawi H, Oklu R. Paget-Schroetter syndrome: treatment of venous thrombosis and outcomes. *Cardiovasc Diagn Ther.* 2017; 7 (Suppl 3): 285–90. DOI: 10.21037/cdt.2017.08.15.
- Heil J, Miesbach W, Vogl T, Bechstein WO, Reinisch A. Deep Vein Thrombosis of the Upper Extremity. *Dtsch Arztebl Int.* 2017; 114 (14): 244–9. DOI: 10.3238/arztebl.2017.0244.
- Keller RE, Croswell DP, Medina GIS, Cheng TTW, Oh LS. Paget-Schroetter syndrome in athletes: a comprehensive and systematic review. *J Shoulder Elbow Surg.* 2020 Nov; 29 (11): 2417–25. DOI: 10.1016/j.jse.2020.05.015. Epub 2020 Jun 9. PMID: 32868012.
- Российские клинические рекомендации по профилактике и лечению венозных тромбозов и тромбоэмболических осложнений (ВТЭО). *Флебология.* 2015; 2: 4–52.
- Phadke DR, Sheeran DP, Wilkins LR, Kern JA, Tracci MC, Angle JF. Impact of Venous Collaterals on Clinical Outcomes in Paget-Schroetter Syndrome. *J Vasc Interv Radiol.* 2019; 30: 572–7. DOI: 10.1016/j.jvir.2018.12.0.
- Bosch FTM, Nisio MD, Büller HR, van Es N. Diagnostic and therapeutic management of upper extremity deep vein thrombosis. *J Clin Med.* 2020; 9 (7): 2069. DOI: 10.3390/jcm9072069.
- Thiyagarajah K, Ellingwood L, Endres K, Hegazi A, Radford J, Iansavitchene A., et al. Post-thrombotic syndrome and recurrent thromboembolism in patients with upper extremity deep vein thrombosis: A systematic review and meta-analysis. *Thromb Res.* 2019; 174: 34–39. DOI: 10.1016/j.thromres.2018.12.012.
- Bleker SM, van Es N, Kleijnan A, Büller HR, Kamphuisen PW, Aggarwal A, et al. Current management strategies and long-term clinical outcomes of upper extremity venous thrombosis. *J Thromb Haemost.* 2016 May; 14 (5): 973–81. DOI: 10.1111/jth.13291. Epub 2016 Apr 4. PMID: 26866515.
- Moore R, Wei Lum Y. Venous thoracic outlet syndrome. *Vasc Med.* 2015 Apr; 20 (2): 182–9. DOI: 10.1177/1358863X14568704. PMID: 25832605.
- Мазайшвили К. В., Дарвин В. В., Климова Н. В., Кабанов А. А., Лобанов Д. С., Можанова Г. А. Клинический случай успешного селективного катетерного тромболиза при синдроме Педжета-Шреттера. *Вестник СурГУ. Медицина.* 2018; 4 (38): 28–32.

References

1. Chandra V, Little C, Lee JT. Thoracic outlet syndrome in high-performance athletes. *J Vasc Surg.* 2014 Oct; 60 (4): 1012–7; DOI: 10.1016/j.jvs.2014.04.013. Epub 2014 May 14. PMID: 24835692.
2. Hangge P, Rotellini-Coltvet L, Deipolyi AR, Albadawi H, Oklu R. Paget-Schroetter syndrome: treatment of venous thrombosis and outcomes. *Cardiovasc Diagn Ther.* 2017; 7 (Suppl 3): 285–90. DOI: 10.21037/cdt.2017.08.15.
3. Heil J, Miesbach W, Vogl T, Bechstein WO, Reinisch A. Deep Vein Thrombosis of the Upper Extremity. *Dtsch Arztebl Int.* 2017; 114 (14): 244–9. DOI: 10.3238/arztebl.2017.0244.
4. Keller RE, Croswell DP, Medina GIS, Cheng TTW, Oh LS. Paget-Schroetter syndrome in athletes: a comprehensive and systematic review. *J Shoulder Elbow Surg.* 2020 Nov; 29 (11): 2417–25. DOI: 10.1016/j.jse.2020.05.015. Epub 2020 Jun 9. PMID: 32868012.
5. Rossijskie klinicheskie rekomendacii po profilaktike i lecheniju venoznyh tromboembolicheskikh oslozhnenij (VTJeO). *Flebologija.* 2015; 2: 4–52.
6. Phadke DR, Sheeran DP, Wilkins LR, Kern JA, Tracci MC, Angle JF. Impact of Venous Collaterals on Clinical Outcomes in Paget-Schroetter Syndrome. *J Vasc Interv Radiol.* 2019; 30: 572–7. DOI: 10.1016/j.jvir.2018.12.0.
7. Bosch FTM, Nisio MD, Büller HR, van Es N. Diagnostic and therapeutic management of upper extremity deep vein thrombosis. *J Clin Med.* 2020; 9 (7): 2069. DOI: 10.3390/jcm9072069.
8. Thiyagarajah K, Ellingwood L, Endres K, Hegazi A, Radford J, Iansavitchene A., et al. Post-thrombotic syndrome and recurrent thromboembolism in patients with upper extremity deep vein thrombosis: A systematic review and meta-analysis. *Thromb Res.* 2019; 174: 34–39. DOI: 10.1016/j.thromres.2018.12.012.
9. Bleker SM, van Es N, Kleinjan A, Büller HR, Kamphuisen PW, Aggarwal A, et al. Current management strategies and long-term clinical outcomes of upper extremity venous thrombosis. *J Thromb Haemost.* 2016 May; 14 (5): 973–81. DOI: 10.1111/jth.13291. Epub 2016 Apr 4. PMID: 26866515.
10. Moore R, Wei Lum Y. Venous thoracic outlet syndrome. *Vasc Med.* 2015 Apr; 20 (2): 182–9. DOI: 10.1177/1358863X14568704. PMID: 25832605.
11. Mazajshvili KV, Darvin VV, Klimova NV, Kabanov AA, Lobanov DS, Mozhanova GA. Klinicheskij sluchaj uspešnogo selektivnogo kateternogo trombolizisa pri sindrome Pedzheta-Shrettera. *Vestnik SurGU. Medicina.* 2018; 4 (38): 28–32.