

## The beat goes on

# Pulsierender bilateraler Oberschenkel tumor

Sarah Brunner<sup>a</sup>, Daniel Staub<sup>a</sup>, Andrej Isaak<sup>b</sup>, Thomas Wolff<sup>b</sup>, Martin Takes<sup>c</sup>, Heiko Uthoff<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Klinik für Angiologie, Universitätsspital Basel, <sup>b</sup> Klinik für Gefäßchirurgie, Universitätsspital Basel, <sup>c</sup> Klinik für Interventionelle Radiologie, Universitätsspital Basel

## Hintergrund

Mykotische Aneurysmata, durch Mikroorganismen hervorgerufene Infektionen der Gefäßwand mit Erweiterung derselben, sind eine seltene aber gefährliche Komplikation invasiver bakterieller Infekte.

## Fallbericht

### Anamnese

Einem 64-jährigen Patienten fielen auf dem Sofa sitzend zwei neu aufgetretene pulsierende Beulen an beiden Oberschenkeln auf. Ein Ultraschall durch den Hausarzt zeigte bilaterale Aneurysmata im Bereich der Femoralarterien. Der Patient wurde zur weiteren Beurteilung und Therapie ans Universitätsspital überwiesen.

Vier Wochen zuvor war bei akutem putridem Spätinfekt seiner 2011 extern implantierten Hüftendoprothese eine Hüftgelenkspülung rechts mit Nachweis von *Streptococcus pneumoniae* durchgeführt worden. Seitdem wurde eine resistenzgerechte parenterale antibiotische Therapie mit Ceftriaxon 2 g/Tag ambulant verabreicht. Der Verlauf diesbezüglich war unauffällig (kein Fieber, subjektives Wohlbefinden).

Im Rahmen der Infektherdsuche wurde beim Patienten eine leichte Aortenklappeninsuffizienz und eine Dilatation der Aorta ascendens festgestellt, jedoch ohne Hinweise für Klappenvegetationen. Die Dilatation der Aorta ascendens war bereits im Jahr 2012 im Rahmen einer Computertomographie bei Polytrauma diagnostiziert worden und zeigte sich grössenstationär

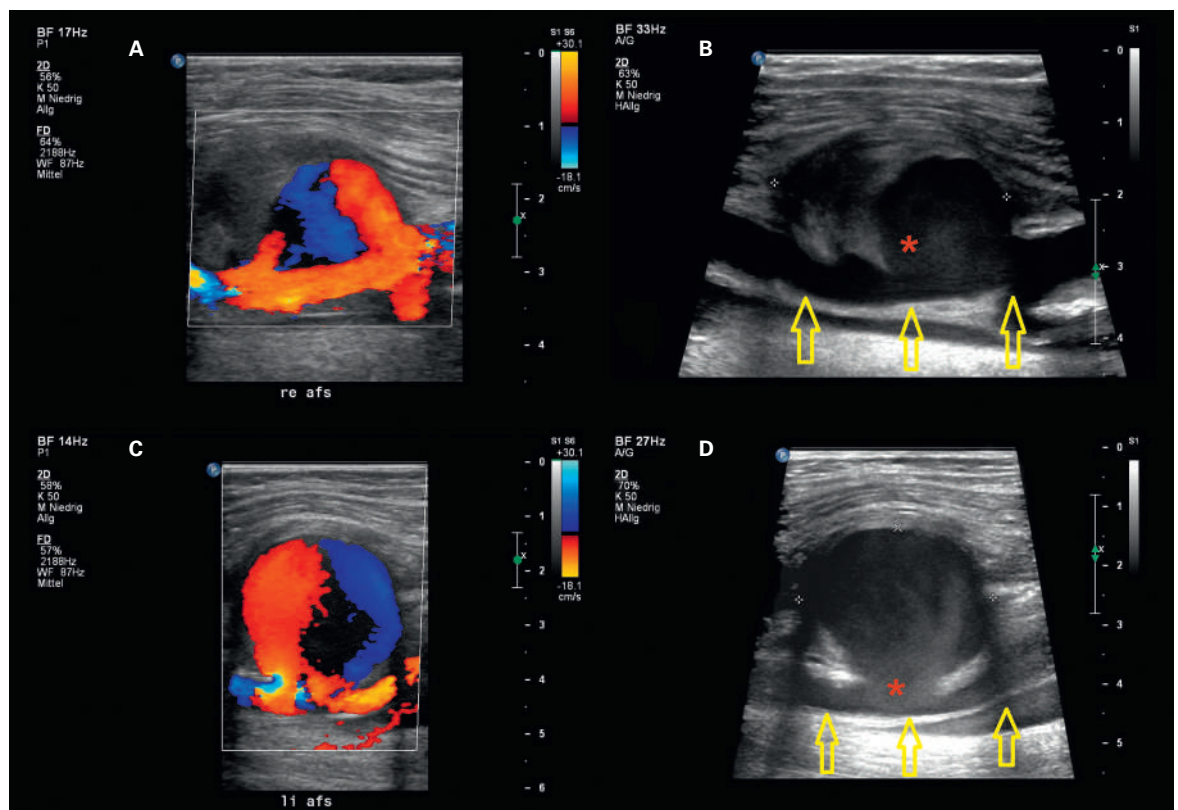


Abbildung 1: Aneurysma der distalen Arteria femoralis superficialis (gelbe Pfeile) mit Darstellung des Gefäßwanddefekts (\*) (A, B rechtes Bein; C, D linkes Bein).

(45 mm). Die in der Eiweisselektrophorese nachgewiesene monoklonale Bande IgG lambda wurde bei einem M-Protein-Gradient  $<30$  g/l,  $<10\%$ iger Plasmazellinfiltration im Knochenmark und fehlenden Organschäden vorderhand als Monoklonale Gammopathie unklarer Signifikanz (MGUS) gewertet. Eine mit Amlodipin gut eingestellte arterielle Hypertonie sowie ein Status nach Halswirbelkörper-Stabilisierungsoperation waren vorbeschrieben.

### Befunde

Es zeigte sich ein afebriler Patient in gutem Allgemein- und normalem Ernährungszustand mit gut tastbaren Fusspulsen. Im Bereich beider distaler Oberschenkel zeigten sich bereits inspektorisch pulsierende nicht schmerzhaft Tumoren mit einem Durchmesser von ca. 3 cm, ohne lokale Entzündungszeichen oder Zeichen einer peripheren Embolisierung. In der duplexsonographischen Untersuchung zeigten sich jeweils grossflächige Gefässwanddefekte der Arteria femoralis superficialis mit perfundierten angrenzenden Aneurysmata (rechts  $3,4 \times 2,8 \times 2,7$  cm; links  $3,6 \times 3,4 \times 3,0$  cm) (Abb. 1). Laborchemisch zeigte sich ein leicht erhöhter CRP-Wert von  $26$  mg/l bei normwertiger Leukozytenzahl von  $7,0 \times 10^9/l$  sowie eine normochrome normozytäre Anämie (Hb  $112$  g/l).



**Abbildung 2:** MR-Angiographie mit Darstellung der femoralen Aneurysmata beidseits.

### Verlauf

Bei dringendem Verdacht auf mykotische Aneurysmata der Femoralarterien wurde der Patient unter Fortführung der antibiotischen Therapie hospitalisiert. In der durchgeführten MR-Angiographie konnten bis auf die Aneurysmata der Femoralarterien und der grössenstationären bekannten Dilatation der Aorta ascendens (44 mm) keine weiteren Aneurysmata nachgewiesen werden (Abb. 2). Die Aneurysmata wurden in der Folge reseziert und durch Veneninterponate ersetzt. Intraoperativ zeigten sich nur geringgradig arteriosklerotisch veränderte Gefässe ohne offensichtliche Infektzeichen im Bereich der Aneurysmata (Abb. 3). Histologisch zeigten sich fokale transmurale bis in die Adventitia reichende Nekrosen der Gefässwand. Sowohl im Direktpräparat, in der Kultur als auch in der eubakteriellen PCR-Untersuchung liessen sich keine Bakterien nachweisen. Der postoperative Verlauf gestaltete sich problemlos. Die antibiotische Therapie wurde bei Entlassung auf Amoxicillin  $3 \times 1$  g/Tag per os für weitere fünf Wochen umgestellt.

### Diskussion

Der Begriff *mykotisches* Aneurysma als Bezeichnung für eine infektiös bedingte Gefässwunderweiterung wurde durch Sir William Osler um 1885 geprägt. Der Begriff «mykotisch» leitet sich jedoch nicht wie suggeriert von einer Pilzinfektion ab, sondern wurde von Osler vorderhand als morphologische Beschreibung im Sinne eines «pilzähnlichen» Aussehens der Aneurysmata im Rahmen einer (bakteriellen) Endokarditis verwendet [1].

Heute wird der Begriff weiterhin generell zur Bezeichnung eines *infizierten* Aneurysmas resp. *durch einen Mikroorganismus hervorgerufenen* Aneurysma verwendet. Pathogenetisch ist eine «endogene» Infektion der Arterienwand durch Adhäsion und Invasion einer gesunden oder vorgeschädigten Gefässwand durch zirkulierende Bakterien oder durch septische Embolien in die Vasa vasorum möglich. Aber auch eine Infektion per continuitatem durch direkte Invasion der Gefässwand von aussen aufgrund eines Infekts eines unmittelbar benachbarten Organes oder Fremdkörpers kann die Ursache sein [2].

Die genaue Inzidenz von mykotischen Aneurysmata ist nicht bekannt, ist aber sicher selten geworden, seit eine bakterielle Endokarditis effektiv antibiotisch behandelt werden kann, da diese früher die häufigste Ursache für mykotische Aneurysmata war [1]. Ältere Daten von Brown et al. (1984) zeigen, dass bezüglich der Lokalisation der Infektion im Gefässsystem an erster Stelle die Femoralarterie (38%) und am zweithäufigsten

die abdominelle Aorta (31%) betroffen sind [3]. Als Ätiologie wird dabei die traumatische Genese (iatrogen, traumatisch, IV-Drogenabusus) an erster Stelle genannt, bei 25% ist keine klare Infektionsquelle eruierbar; die Endokarditis machte etwa noch 10% der Fälle aus [3]. Unabhängig von der Lokalisation der Arterieninfektionen sind heute die häufigsten Erreger grampositive Kokken wie *Staphylococcus aureus* oder Streptokokken (59–81%); die restlichen werden durch gramnegative Stäbchen wie *Pseudomonas aeruginosa*, *Escherichia coli* und im Bereich der Aorta immer mehr durch Salmonellen verursacht [4]. Unter den Streptokokken sind die Pneumokokken heute eher seltene, jedoch insgesamt

wieder zunehmend nachweisbare Erreger mit in 20% (CH) bis >30% (USA) der Fälle Einfach- bzw. Multiresistenzen gegen Penicillin, Ceftriaxon, etc. [4–7]. Gewisse Keime scheinen unterschiedliche Prädispositionsstellen im Gefäßsystem zu haben, wie zum Beispiel die Salmonellen die abdominelle Aorta (36% der mykotischen Aortenaneurysmata sind durch Salmonellen verursacht, 65% der vaskulären Salmonelleninfekte sind in der Aorta lokalisiert) [1]. In einer Fallserie von durch Pneumokokken verursachten mykotischen Aneurysmata war meist die abdominelle, etwas weniger die thorakale Aorta und seltener der Aortenbogen betroffen; Fälle infizierter Femoralarterien waren in dieser Fallserie nicht beschrieben [2].

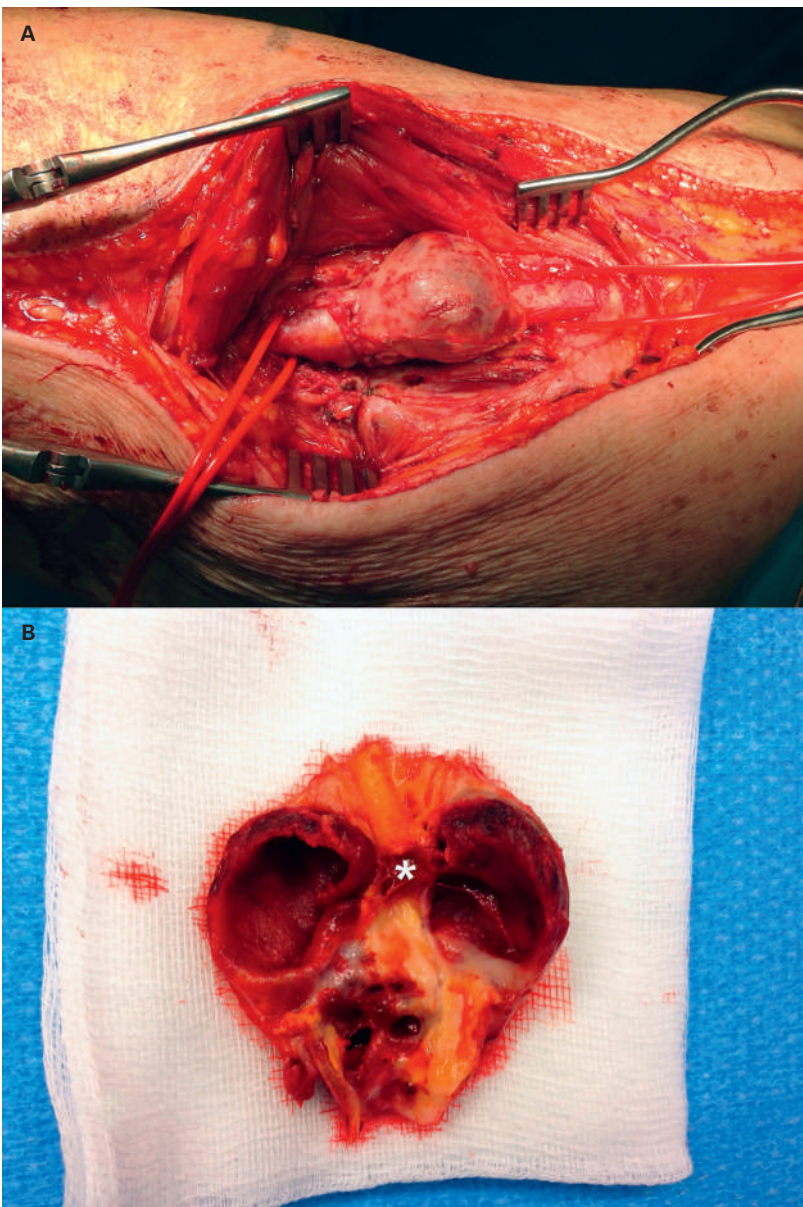
Bei klinischem Verdacht auf ein infiziertes resp. mykotisches Aneurysma wird in etwa 75% ein Erregernachweis in den Blutkulturen beschrieben, in 25% ist letztendlich keine Identifikation möglich [3].

In unserem Fall ist der enge zeitliche Zusammenhang mit dem vorangehenden Pneumokokken-Fremdkörperinfekt und dem Auftreten von bilateralen femoralen Aneurysmata mit histologisch nachgewiesener transmuraler Gefäßwandnekrose hochverdächtig für eine infektiöse Genese derselben. Die bei Diagnosestellung bereits seit gut vier Wochen etablierte parenterale antibiotische Therapie war offensichtlich effektiv, so dass zu diesem Zeitpunkt kein direkter Bakteriennachweis mehr gelang. Entsprechend konnte in Rücksprache mit den Infektiologen die antibiotische Therapie bei Austritt auf per oral umgestellt werden. Für invasive Pneumokokkeninfektionen gelten eine Immundefizienz bzw. eine chronische Lungenkrankheit als prädisponierende Faktoren [4], ob analog die MGUS bei unserem Patienten einen prädisponierenden Faktor zur mykotischen Aneurysmaausbildung dargestellt hat, ist letztendlich unklar.

Die Symptome eines mykotischen Aneurysmas sind oft diffus. Meist bestehen Allgemeinsymptome wie Fieber, Abgeschlagenheit, Gewichtsverlust und lokale Beschwerden; bei aortalem Befall sind abdominelle und lumbale Schmerzen beschrieben, und es wird gelegentlich eine pulsierende Masse getastet [2]. Letzteres war auch der Zuweisungsgrund bei unserem, ansonsten asymptomatischen Patienten.

### Rupturgefahr

Mykotische Aneurysmata sind potenziell fulminant verlaufende Erkrankungen. Die Gefahr einer Ruptur des Aneurysmas ist hoch. Mortalitätsraten werden im Gesamtkollektiv der mykotischen Aneurysmata bei Infekt mit gramnegativen Bakterien mit bis zu 80%, mit grampositiven Keimen mit 25–50% angegeben, wobei die meisten dieser Fallsammlungen älter sind und



**Abbildung 3:** A: Intraoperativer Situs mit Darstellung der distalen Arteria femoralis superficialis und des Aneurysmas. B: Exzidiertes und längs eröffnetes Aneurysma mit Darstellung des Gefäßwanddefekts (\*).

Korrespondenz:  
 PD Dr. med. Heiko Uthoff  
 Universitätsspital Basel  
 Klinik für Angiologie  
 Petersgraben 4  
 CH-4031 Basel  
 heiko.uthoff[at]usb.ch

es sich um einen aortalen Gefässbefall handelt [3, 5]. Brown et al. berichtet unabhängig vom Keim über eine Gesamtmortalität von abdominalen mykotischen Aneurysmata von 40% und von 10% bei Femoralarterienbefall [3]. Die Behandlung besteht neben der resistenzgerechten antibiotischen Therapie in der möglichst rasch durchgeführten kompletten Exzision des Aneurysmas und Ersatz mittels Interponat, wenn immer möglich aus biologischem Material (Veneninterponat) [5, 6]. Deshalb sollte bei Verdacht auf ein mykotisches Aneurysma neben Abnahme von Blutkulturen und Entzündungsparametern umgehend eine Überweisung an ein gefässmedizinisches Zentrum erfolgen.

Die letztendliche Wahl der (chirurgischen) Therapie hängt von der Aneurysmalokalisation und -ausdehnung, der Verfügbarkeit eines passenden Homografts oder geeigneter körpereigener Venen und des Ausmas-

ses der Ausbreitung der Infektion ab. Die antibiotische Therapie sollte nach Resistenzlage erfolgen und wird in der Regel für mindestens vier bis acht Wochen postoperativ fortgeführt. Der laborchemische Verlauf der Entzündungsparameter, die Möglichkeit zur vollständigen operativen Sanierung und gegebenenfalls bildmorphologische Verlaufskontrollen (z.B. mittels <sup>18</sup>F-FDG PET/CT) können bezüglich Dauer der antibiotischen Therapie Entscheidungshilfen geben. Bisherige Empfehlungen beruhen dabei vorderhand auf Fallberichten und schliessen eine lebenslange antibiotische Therapie bei operativ nicht resezierbarem Fokus ein [2].

#### Disclosure statement

Die Autoren haben keine finanziellen oder persönlichen Verbindungen im Zusammenhang mit diesem Beitrag deklariert.

#### Literatur

- 1 Creager Mark A, Beckman JA, Loscalzo J, Vascular Medicine: A companion to Braunwald's heart disease, 2nd ed., Elsevier Saunders 2013, Chapter XVIII, Vascular infections: 709–26.
- 2 Nijs A, Vandekerckhof J, Cartuyvels R, Magerman K, Mewis A, Peeters V et al. Streptococcus pneumoniae-infected aneurysm extending from a persistent lobar pneumonia: Case report and review of the literature. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis.* 2002;(21):389–92.
- 3 Brown SL; Busuttill RW, Baker JD, Machleder HI, Moore WS, Barker WF. Bacteriologic and surgical determinants of survival in patients with mycotic aneurysms. *J. Vasc Surg.* 1984;1(4):541–47.
- 4 McDowell DT; Condeon ET, Ahmed M, Crowe M, Barry MC, Mehigan D. Synchronous Aortic and Superficial Femoral Artery Pneumococcal Mycotic Aneurysms in a 43-year-old Male: A Question of Timing! *EJVES Extra.* 2006;11:42–46.
- 5 Brouwer RE, van Bockel HJ, van Dissel JT. Streptococcus pneumoniae, an emerging pathogen in mycotic aneurysms? *Netherlands Journal of Medicine.* 1998;52:16–21.
- 6 Albrecht WE, Papasian CJ, Bamberger, Fiorella R, Riddell SW, Infected abdominal aortic aneurysma due to Penicillin, Ceftriaxone- and Cefotaxime-resistant Streptococcus pneumoniae, *Journal of Clinical Microbiology*;pr 1997:985–87
- 7 BAG (Bundesamt für Gesundheit). Korrigendum Pneumokokken-erkrankungen 2012. *Bulletin* 6:74.

## Schlussfolgerungen für die Praxis

Infektiöse (mykotische) Aneurysmata sind eine seltene aber gefährliche Gefässkomplikation bei invasiven Infekten mit Bakteriämie und/oder perivaskulärer Lokalisation.

Bei steigender Anzahl älterer und auch chronisch kranker respektive immunkompromittierter Patienten (z.B. chronische Niereninsuffizienz, Diabetes mellitus) erscheint es uns wichtig, an die Entität eines mykotischen Aneurysmas zu denken, insbesondere bei Auftreten von unspezifischen Allgemeinsymptomen nach einem (banalen) bakteriellen Infekt. Die Diagnosestellung ist nicht immer so einfach wie im vorliegenden Fall mit oberflächlich pulsierenden Aneurysmata und kann im Einzelfall, insbesondere bei aortalem Befall, schwierig sein. Aber auch hier gilt: Daran denken kann Leben retten!