

Rzadki przypadek obumierania podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków

A rare case of subcutaneous fat necrosis of the newborn

Agata Maciejewska-Radomska¹, Aleksandra Wilkowska¹, Joanna Jagłowska², Jolanta Wierzbą², Jadwiga Roszkiewicz¹

¹Katedra i Klinika Dermatologii, Wenerologii i Alergologii Gdańskiego Uniwersytetu Medycznego
Kierownik: prof. dr hab. n. med. Jadwiga Roszkiewicz

²Klinika Pediatrii, Hematologii, Onkologii i Endokrynologii Gdańskiego Uniwersytetu Medycznego
Kierownik: prof. dr hab. n. med. Anna Balcerska

Przegl Dermatol 2011, 98, 317–321

SŁOWA KLUCZOWE:

obumieranie tkanki podskórnej u noworodków, SCFN, zespół aspiracji smółki.

KEY WORDS:

subcutaneous fat necrosis of the newborn, SCFN, meconium aspiration.

ADRES DO KORESPONDENCJI:
dr n. med. Agata Maciejewska-Radomska
Katedra i Klinika Dermatologii, Wenerologii i Alergologii
Gdański Uniwersytet Medyczny
ul. Dębinki 7, 80-211 Gdańsk
e-mail: kanika@autograf.pl

STRESZCZENIE

Wprowadzenie. Obumieranie podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków (ang. *subcutaneous fat necrosis of the newborn* – SCFN) jest rzadkim schorzeniem zaliczanym do grupy zrazikowych zapaleń tkanki podskórnej. Choroba występuje u noworodków i niemowląt jako następstwo powikłań ciążowych i/lub okołoporodowych. Do czynników predysponujących zalicza się przede wszystkim niedotlenienie okołoporodowe, zespół aspiracji smółki i uraz okołoporodowy. Klinicznie schorzenie manifestuje się tworzeniem w obrębie podskórnej tkanki tłuszczowej zmian o charakterze obrzękowym z tendencją do ich ewolucji w lite tarczki i/lub guzki. Zmianom skórnym mogą towarzyszyć również zaburzenia ogólnoustrojowe, w tym zagrażająca życiu ciężka hiperkalcemia. Zmiany skórne ulegają samoistnej regresji bez pozostawienia blizn w ciągu kilku tygodni lub miesięcy.

Cel pracy. Przedstawienie rzadkiego przypadku obumierania podskórnej tkanki tłuszczowej o lekkim przebiegu.

Opis przypadku. Niemowlę miesięczne, urodzone o czasie metodą cięcia cesarskiego z powodu wahań tętna, w stanie ciężkiej zamartwicy. W toku diagnostyki zaburzeń oddechowych potwierdzono zespół aspiracji smółki. W pierwszych dobach życia w badaniach laboratoryjnych obserwowano przejściową trombocytopenię oraz podwyższone wykładniki stanu zapalnego. W obrębie skóry pleców oraz na kończynach górnych stwierdzono ponadto zmiany o charakterze obrzękowym z tendencją do przekształcania się w guzki i lite blaszki barwy czerwonej i purpurowej. Na podstawie typowego obrazu klinicznego rozpoznano SCFN. W trakcie 3-miesięcznej obserwacji zaobserwowano samoistne ustępowanie zmian bez pozostawienia blizn.

Wnioski. Obumieranie podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków jest rzadkim schorzeniem, które u opisywanej chorej miało łagodny przebieg. Należy jednak pamiętać, że w niektórych przypadkach zmiany skórne mogą być zwiastunem zagrażających życiu zaburzeń metabolicznych.

ABSTRACT

Introduction. Subcutaneous fat necrosis of the newborn (SCFN) is a rare disorder of the subcutaneous adipose tissue. Subcutaneous fat

necrosis of the newborn usually appears days to weeks after a complicated perinatal period and the most frequent risk factors are birth asphyxia, birth trauma and meconium aspiration. Clinically, the disease is characterized by oedematous lesions evolving into indurated, erythematous plaques and nodules. Skin lesions dissolve spontaneously in weeks/months.

Objective. To present a rare case of subcutaneous fat necrosis of the newborn.

Case report. Monthly infant, born at time of caesarean due to fluctuations in heart rate in a state of severe asphyxia. As a cause of respiratory distress, meconium aspiration syndrome was confirmed. In the first days of life transient thrombocytopenia and elevated markers of inflammation in the laboratory tests were observed. In addition, oedematous lesions evolving into indurated plaques and nodules on the back and upper limbs appeared. Based on a typical clinical picture diagnosis of subcutaneous fat necrosis of newborn was diagnosed. During the 3-month follow-up a spontaneous regression of the skin lesions without scarring was observed.

Conclusions. Subcutaneous fat necrosis of the newborn is a rare disease usually with mild course. However, in some cases skin may be a visual marker of life-threatening metabolic disturbances such as hypercalcaemia.

WPROWADZENIE

Obumieranie podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków (ang. *subcutaneous fat necrosis of the newborn* – SCFN) jest rzadkim schorzeniem zaliczanym do grupy zrazikowych zapaleń tkanki podskórnej. Czynnikiem ryzyka są nieprawidłowości w okresie okołoporodowym, takie jak uraz, hipotermia, niedotlenienie, infekcja wewnątrzmaciczna czy zespół aspiracji smółki (ang. *meconium aspiration syndrome* – MAS). W obrazie klinicznym przebiegają zmiany skórne początkowo o charakterze obrzękowym z następczym tworzeniem nacieczonych blaszek i/lub guzków w obrębie podskórnej tkanki tłuszczowej, zlokalizowanych głównie w obrębie tułowia i kończyn. Rokowanie co do wyleczenia jest dobre, ponieważ zmiany wykazują tendencję do samoistnej regresji bez pozostawienia blizn. W niektórych przypadkach przebieg choroby mogą jednak wikłać zagrażające życiu ogólnoustrojowe zaburzenia metaboliczne, np. ciężka hiperkalcemia.

CEL PRACY

Przedstawienie rzadkiego przypadku obumierania podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków o łagodnym przebiegu.

OPIS PRZYPADKU

Niemowlę miesięczne, płci żeńskiej, z ciąży II, urodzone o czasie metodą cięcia cesarskiego z powodu wahań tętna, w stanie ciężkiej zamartwicy (1 pkt wg skali Apgar). Wywiad ciążyowy nie był obciążony. W czasie ciąży matka nie przyjmowała leków i nie stosowała używek. Bezpośrednio po urodzeniu się dziecka, ze względu na jego bardzo ciężki stan ogólny, podjęto resuscytację krążeniowo-oddechową. Po 30 min akcji przywracania funkcji życiowych uzyskano następujące parametry: pH 6,896, pCO₂ 69,3, pO₂ 54,1, HCO₃ -13,1 i BE -21,5. Noworodka przekazano na oddział intensywnej terapii, gdzie przebywał w następnych dobach życia w związku ze stwierdzoną ciężką niewydolnością oddechową, z powodu której przez 4 dni prowadzono wentylację mechaniczną, a następnie tlenoterapię bierną. W badaniu radiologicznym klatki piersiowej uwidoczniono odmę opłucnową prawostronną, którą niezwłocznie odbarczono. Stwierdzono ponadto liczne zagęszczenia mięsaszowe w płucu lewym odpowiadające MAS. W pierwszych dobach po urodzeniu w morfologii krwi obwodowej obserwowano przejściową trombocytopenię oraz podwyższone wykładniki stanu zapalnego (duże stężenie prokalcytoniny oraz białka C-reaktywnego do 173 mg/l). W pozostałych badaniach laboratoryjnych (w tym



Ryc. 1. Czerwone i purpurowe blaszki i guzki w obrębie pleców u miesięcznego niemowlęcia w przebiegu obumierania podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków

Fig. 1. Red-purple plaques and nodules on the back in the course of subcutaneous fat necrosis of the newborn



Ryc. 2. Samoistne ustąpienie zmian skórnych – obraz kliniczny po 3 miesiącach

Fig. 2. Spontaneous regression of skin lesions – clinical picture after 3 months

w zakresie gospodarki wapniowej) i obrazowych nie wykazano odchyień od stanu prawidłowego. Kilka dni po narodzinach w obrębie pleców oraz na kończynach górnych zaobserwowano zmiany o charakterze obrzękowym, których przybywało w ciągu kolejnych 5–6 tygodni. Z czasem zmiany ewoluowały do ognisk o charakterze litych blaszek i guzków barwy czerwonej i purpurowej (ryc. 1.) W celu potwierdzenia diagnozy zdecydowano o pobraniu wycinka skórniego do weryfikacji histopatologicznej, który okazał się niediagnostyczny ze względu na brak podskórnej tkanki tłuszczowej w bioptacie. Pomimo to, uwzględniając klasyczny obraz kliniczny, u dziewczynki rozpoznano SCFN. W trakcie dalszej 3-miesięcznej obserwacji stwierdzono samoistne ustępowanie zmian bez pozostawienia blizn (ryc. 2.).

OMÓWIENIE

Obumieranie podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków jest rzadkim zaburzeniem zaliczanym do grupy zrazikowych zapaleń tkanki podskórnej. Charakteryzuje się występowaniem zmian początkowo o charakterze obrzękowym z następczym tworzeniem się czerwonych i purpurowych spoistych blaszek lub guzków w obrębie pleców, pośladków, ud, tylnobocznych powierzchni przedramion, rzadko twarzy [1]. Zmiany pojawiają się zwykle w pierwszych 6 tygodniach życia u noworodków urodzonych o czasie lub po terminie. Schorzenie występuje jako następstwo ciąży i porodów powikłanych (95% przypadków) w wyniku takich zjawisk, jak konflikt serologiczny, aspiracja smółki, wypadnięcie pępowiny, łożysko przodujące, niedotlenienie i uraz okołoporodowy, hipotermia, sepsa, niedokrwistość, cukrzyca ciężarnych, stan przedzru-

cawkowy czy używanie lub przedawkowanie leków lub narkotyków przez matkę. Wystąpienie schorzenia nie zależy od metody porodu (droga naturalna vs cięcie cesarskie) [2–8], a najczęstszą przyczyną SCFN wydaje się niedotlenienie okołoporodowe [2]. Cechą typową jest spontaniczne ustępowanie zmian w ciągu kilku miesięcy od ich pojawienia się.

Istnieje kilka hipotez dotyczących zjawisk patogenetycznych leżących u podłoża SCFN. Jedną z nich zakłada, że kluczowym czynnikiem jest skład tkanki tłuszczowej noworodków. Różni się ona bowiem od tkanki tłuszczowej osób dorosłych większą procentową zawartością nasyconych kwasów tłuszczowych, co zwiększa ryzyko ich krystalizacji pod wpływem czynników termicznych (zimna), uszkodzenia adipocytów oraz zapalenia ziarniniakowego w obrębie tkanki podskórnej [9]. Innym potencjalnie istotnym zjawiskiem jest niedojrzałość enzymów zaangażowanych w przemianę kwasów tłuszczowych u noworodków [3]. Pod uwagę bierze się także zaburzenia utleniania krwi mogące wystąpić w trakcie akcji porodowej, co potwierdza fakt częstszego występowania schorzenia u dzieci urodzonych metodą cięcia cesarskiego ze wskazań życiowych [2].

Martwica podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków jest wynikiem lokalnych zaburzeń metabolicznych, jednak w niektórych przypadkach zmiany skórne mogą być zwiastunem ciężkich, zagrażających życiu zaburzeń ogólnoustrojowych. Spośród nich najczęściej obserwuje się hipoglikemię i trombocytopenię [10], które wyprzedzają o kilka dni lub tygodni pojawienie się nekrozy podskórnej tkanki tłuszczowej. Zaburzenia w zakresie liczby płytek krwi tłumaczy się ich możliwą sekwestracją w tkance podskórnej. Biopsja szpiku u osób z SCFN nie wyka-

Tabela I. Różnicowanie obumierania podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków
Table I. Differential diagnosis of subcutaneous fat necrosis of the newborn

	Obumieranie podskórnej tkanki tłuszczowej	Zapalenie tkanki podskórnej wywołane zimnem	Twardzina noworodków
Poród	poród o czasie/ciąża przenoszona	bez związku	poród przedwczesny
Czynniki predysponujące	matka – cukrzyca ciężarnych, nadciśnienie; płód – niedotlenienie okołoporodowe, sinica, hipotermia	brak czynników matczynych, uraz termiczny	brak czynników matczynych i powikłań okołoporodowych
Początek zmian skórnych	pierwsze 6 tygodni życia	w ciągu 72 godzin od ekspozycji na zimno	pierwszy tydzień życia
Objawy ze strony skóry	czerwone i purpurowe, niebieskie blaszki i guzki w obrębie tułowia, pośladków, ramion, rzadko twarzy	czerwone lub niebieskie zmiany naciekowe lub blaszki	rozsiane żółtobiaławe guzki; okolice genitalne, ręce i podeszwy stóp wolne od zmian
Rokowanie	dobrze; powikłania, w tym hiperkalcemia, w 15% przypadków	bardzo dobre	złe – śmiertelność w 75% przypadków

zuje odchylen od stanu prawidłowego, a poziom płytek ulega normalizacji wraz z ustępowaniem zmian skórnych [11]. W piśmiennictwie można znaleźć także kilka opisów przypadków hipertriglicerydemii w przebiegu SCFN, której wystąpienie wiąże się z uwolnieniem triglicerydów z uszkodzonych adipocytów. Rzadziej stwierdza się także niedokrwistość, której rola nie została dotąd wyjaśniona. Postuluje się jednak, że ciężka niedokrwistość może indukować proces obumierania podskórnej tkanki tłuszczowej w związku ze zmniejszoną perfuzją tkankową prowadzącą do lokalnego niedotlenienia oraz hipotermii [5]. Opisywano także groźną dla życia noworodków hiperkalcemię w przebiegu SCFN [3, 10, 12, 13]. Może ona prowadzić do ciężkich zaburzeń w obrębie układu sercowo-naczyniowego oraz do niewydolności nerek. Za zjawisko zwiększonego stężenia jonów wapnia w surowicy odpowiada prawdopodobnie wzmożona produkcja przez makrofagi tkankowe 1,25 (OH)₂D₃ (kalcytriol) w zajętej procesem chorobowym tkance tłuszczowej. Powoduje to zwiększone wchłanianie wapnia w jelitach oraz resorpcję wapnia z kości [14, 15]. Jest to jednak założenie czysto hipotetyczne, gdyż zaburzeń gospodarki wapniowej nie stwierdza się u wszystkich pacjentów z SCFN. Zwykle ulegają one nasileniu 1–6 miesięcy po wystąpieniu zmian skórnych, dlatego też wskazana jest regularna kontrola stężenia wapnia w pierwszych miesiącach życia dziecka. Obumieranie podskórnej tkanki tłuszczowej u noworodków może być także przyczyną znacznych dolegliwości bólowych wymagających nawet podawania dziecku opioidowych leków przeciwbólowych [8].

Schorzenie powinno być różnicowane z zapaleniem tkanki podskórnej wywołanym zimnem (ang. *cold panniculitis*) oraz z tzw. twardziną noworodków (*sclerema neonatorum*). Różnicowanie przedstawiono w tabeli I.

U przedstawionej pacjentki rozpoznanie SCFN zostało ustalone bez weryfikacji histopatologicznej, na podstawie typowego obrazu klinicznego. Dziecko urodziło się o czasie, z objawami infekcji wewnątrzmacicznej i z zespołem Morgagniego-Adamsa-Stokesa, w ciężkim stanie ogólnym, metodą cięcia cesarskiego. W pierwszych dobach u dziewczynki obserwowano przejściową trombocytopenię, która o kilka dni wyprzedziła wystąpienie zmian skórnych. Obraz kliniczny spoistych nacieków w obrębie tkanki podskórnej oraz samoistne ich ustępowanie bez pozostawienia blizn były także typowe dla SCFN. W związku z ryzykiem rozwoju hiperkalcemii niemowlę jest pod stałą kontrolą pediatryczną i wymaga dalszego monitorowania parametrów laboratoryjnych, w szczególności stężenia wapnia w surowicy.

Piśmiennictwo

1. **Atherton D.J.:** The neonate. [w:] Textbook of dermatology: R.H. Champion, J.L. Burton, D.A. Burns, S.M. Breathnach (red.). Wyd. 6. Blackwell Science, Oxford, 1998, 1, 449-518.
2. **Burden A.D., Krafchik B.R.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn: a review of 11 cases. *Pediatr Dermatol* 1999, 16, 384-387.
3. **Hicks M.J., Levy M.L., Alexander J., Flaitz C.M.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn and hypercalcemia: case report and the review of the literature. *Pediatr Dermatol* 1993, 10, 271-271.
4. **Chang S.D., Chiu H.C., Chang C.C.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn complicating hypothermic cardiac surgery. *Br J Dermatol* 1995, 132, 805-810.
5. **Varan B., Gurakan B., Ozbek N., Emir S.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn associated with anemia. *Pediatr Dermatol* 1999, 16, 381-383.
6. **Katz D.A., Huerter C., Bogard P., Braddock S.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn. *Arch Dermatol* 1984, 120, 157-158.
7. **Carraccio C., Papadimitriou J., Feinberg P.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn: link to maternal use of cocaine during pregnancy. *Clin Pediatr* 1994, 33, 317-318.

8. **Rosbotham J.L., Johnson A., Haque K.N., Holden C.A.:** Painful subcutaneous fat necrosis of the newborn associated with intra-partum use of a calcium channel blocker. *Clin Exp Dermatol* 1998, 23, 19-21.
9. **Silverman A.K., Michels E.H., Rasmussen J.E.:** Subcutaneous fat necrosis in an infant, occurring after hypothermic cardiac surgery. *J Am Acad Dermatol* 1986, 15, 331-336.
10. **Lewis A., Cowen P., Rodda C., Dyall Smith D.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn complicated by hypercalcaemia and thrombocytopenia. *Australas J Dermatol* 1992, 33, 141-144.
11. **Patterson J.W.:** Panniculitis. [w:] *Dermatology*. J.L. Bologna, J.L. Jorizzo, R.P. Rapini (red.). Wyd. 2. Mosby, Elsevier 2008, 2, 1525-1526.
12. **Wiadrowski T.P., Marshman G.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn following hypothermia and complicated by pain and hypercalcaemia. *Australas J Dermatol* 2001, 42, 207-210.
13. **Norwood Galloway A., Lebwohl M., Phelps R.G., Raucher H.:** Subcutaneous fat necrosis of the newborn with hypercalcemia. *J Am Acad Dermatol* 1987, 16, 435-439.
14. **Kruse K., Irle U., Uhlig R.:** Elevated 1,25-dihydroxyvitamin D serum concentrations in infants with subcutaneous fat necrosis. *J Pediatr* 1993, 122, 460-463.
15. **Bachrach L.K., Lum C.K.:** Etidronate in subcutaneous fat necrosis of the newborn. *J Pediatr* 1999, 135, 530-531.

Otrzymano: 30 XII 2010 r.

Zaakceptowano: 24 II 2011 r.