ДОСВІД ЛІКУВАННЯ ХВОРИХ З РІДКІСНИМИ АРТЕРІОВЕНОЗНИМИ ФІСТУЛАМИ СПИННОГО МОЗКУ

Д.В. ЩЕГЛОВ, О.Є. СВИРИДЮК, А.В. НАЙДА,
Ю.М. САМОНЕНКО, О.В. СЛОБОДЯН

ДУ «Науково-практичний Центр ендоваскулярної нейрорентгенохірургії НАМН України», м. Київ

***Conflict of Interest Statement (We declare that we have no conflict of interest).**

*Заява про конфлікт інтересів (Ми заявляємо, що у нас немає ніякого конфлікту інтересів).

*Заявление о конфликте интересов (Мы заявляем, что у нас нет никакого конфликта интересов).

***No human/animal subjects policy requirements or funding disclosures.**

*Жодний із об'єктів дослідження (людина/тварина) не підпадає під вимоги політики щодо розкриття інформації фінансування.

*Ни один из объектов исследования не подпадает под политику раскрытия информации финансирования.

***Date of submission — 16.12.19**

*Дата подачі рукопису — 16.12.19

*Дата подачі рукопису — 16.12.19

***Date of acceptance — 12.02.20**

*Дата ухвалення — 12.02.20

*Дата одобрения к печати — 12.02.20

Мета роботи – вивчити поширеність, клінічні вияви, особливості діагностики та ефективність лікування рідкісних артеріовенозних фістул спинного мозку.

Матеріали та методи. За період з 2004 до 2019 р. у Науково-практичному Центрі ендоваскулярної нейрорентгенохірургії НАМН України обстежено та проліковано 43 хворих зі спінальними дуральними артеріовенозними фістулами (ДАВФ) – артеріовенозними мальформаціями I типу за класифікацією Anson і Spetzler (1992). Лише у 2 (4,6 %) пацієнтів виявлено відходження аференту від внутрішньої клубової артерії з фістулою на рівні L5-S1. Для діагностики ДАВФ застосовували магнітно-резонансну томографію та спінальну селективну субтракційну ангіографію. При ендоваскулярному втручанні використовували рідкий емболізанти ціаноакрилатної групи і трансфеморальний доступ, при мікрохірургічному втручанні – задній серединний доступ та однорівневу геміламінектомію.

Результати. Тотальне виключення ДАВФ з кровотоку досягнуто в обох пацієнтів. У одного пацієнта проведено мікрохірургічне роз'єднання ДАВФ, іншого прооперовано комбінацією ендоваскулярного та мікрохірургічного методів. В обох пацієнтів відзначено неврологічне поліпшення у післяопераційний період.

Висновки. Артеріовенозні фістули різноманітні за клінічними виявами та рентгеноанатомією. Верифікація венозної гіпертензивної мієлопатії з наявністю виражених перимедулярних судин при магнітно-резонансній томографії є найбільш специфічною ознакою ДАВФ. Якщо стандартна спінальна ангіографія не дає змоги верифікувати аференти ДАВФ, то її слід доповнити селективною катетеризацією внутрішніх клубових артерій, звідки можуть брати початок артерії, які живлять фістулу. Вивчення

ангіоархітектоніки артеріовенозної фістули за даними ангіографії дає змогу вибрати метод хірургічного лікування для ефективного та радикального її роз'єднання.

Ключові слова: спінальна артеріовенозна мальформація; дуральна артеріовенозна фістула; спінальна ангіографія.

Перелік скорочень

St.N.	Status neurologicus
ABM	Артеріовенозна мальформація
АВФ	Артеріовенозна фістула
ДАВФ	Дуральна артеріовенозна фістула
MPT	Магнітно-резонансна томографія
САГ	Селективна ангіографія
СДАВФ	Спінальні дуральні артеріовенозні фістули

Артеріовенозна мальформація (ABM) – це сплетіння аномально розширених артерій і вен з відсутністю капілярної сітки. Такі вади судин спинного мозку та його лептоменінгеальних оболонок є вродженими і найтипівішими серед спінальних судинних аномалій. Артеріовенозна фістула (АВФ) – пряме сполучення між артерією та веною. На її частку припадає 3–4 % від усіх хвороб спинного мозку, які спричиняють неврологічний дефіцит і призводять до неминучої інвалідизації [1]. Вона належить до ABM I типу за класифікацією Anson і Spetzler (1992) [2]:

I тип – дуральні (інтрадуральні або екстрадуральні) АВФ.

II тип – гломусні ABM.

III тип – ювенільні ABM.

IV тип – прямі спінальні АВФ.

Спінальні дуральні артеріовенозні фістули (СДАВФ) характеризуються наявністю однієї аферентної судини і рідко кровопостачаються декількома артеріями. Локалізуються переважно на задній поверхні спинного мозку. На рівні спинного мозку корінцева артерія з'єднується з венозною судиною. Діаметр корінцевої артерії менший за діаметр дренажувальної вени, яка має

більшу протяжність та рівномірну звивистість. Кровотік по дуральних артеріовенозних фістулах (ДАВФ) сповільнений. Найчастіше клінічна симптоматика в пацієнтів із ДАВФ виникає у віці 50–60 років [3].

У 85 % випадків ABM спинного мозку виявляються прогресуючим неврологічним дефіцитом (біль у спині з прогресуючими порушеннями чутливості та слабкістю нижніх кінцівок упродовж місяців або років) [4]. СДАВФ є найпоширенішими вадами судинної патології спинного мозку. На їх частку припадає близько 70 % від усіх судинних мальформацій хребта [5]. Більшість пацієнтів (79–85 %) – чоловіки. Середній вік презентації – 55 років [6]. Більшість фістул є солітарними ураженнями і розташовані в груднинно-поперековій ділянці, понад 80 % СДАВФ – між рівнями T6 та L2. Сакральні ураження виникають лише у 4 % пацієнтів [7].

Мета роботи – вивчити поширеність, клінічні вияви, особливості діагностики та ефективність лікування рідкісних артеріовенозних фістул спинного мозку.

Матеріали та методи

За період з 2004 до 2019 р. у Центрі ендovasкулярної нейрорентгенохірургії НАМН України обстежено та проліковано 43 хворих зі спінальними ABM I типу за класифікацією Anson і Spetzler (1992). Лише у 2 (4,6 %) пацієнтів виявлено відходження аференту від внутрішньої клубової артерії з фістулою на рівні L5-S1. Вік пацієнтів становив 59 та 49 років.

НАЙДА Андрій Володимирович

лікар-нейрохірург

ДУ «Науково-практичний Центр ендovasкулярної нейрорентгенохірургії НАМН України»

Адреса: 04050, м. Київ, вул. Платона Майбороди, 32
Тел. роб.: 044-482-32-17

E-mail: nayda453@gmail.com

ORCID ID: 0000-0002-0453-6190

Для діагностики АВМ застосовували магнітно-резонансну томографію (МРТ) і спінальну селективну субтракційну ангіографію. За даними МРТ грудного відділу хребта, в обох пацієнтів діагностовано ознаки мієлопатії з множинними дрібними розширеними судинами вздовж павутинної оболонки на її рівні (рис. 1).

Рис. 1. Пацієнт Г., 59 років.
Магнітно-резонансна томографія хребта, T2-зв'язане зображення. На рівні грудного відділу хребта ознаки мієлопатії (позначено червоною стрілкою) з множинними дрібними розширеними судинами по ходу павутинної оболонки (позначено білою стрілкою)

При ендоваскулярному втручанні застосовували рідкий емболізатор ціаноакрилатної групи і трансфеморальний доступ, при мікрохірургічному втручанні – задній серединний доступ та однорівневу геміламінектомію.

Результати

Тотальне виключення АВМ з кровотоку досягнуто в обох пацієнтів. Одного пацієнта прооперовано мікрохірургічним методом, іншого – комбінацією ендовас-

кулярного та мікрохірургічного втручання. В обох пацієнтів відзначено неврологічне поліпшення.

Клінічний випадок № 1

Пацієнт Г., 59 років, звернувся зі скаргами на прогресуюче погіршення ходи та сечовипускання. Status neurologicus (St.N.): нижній парапарез Frankel C, порушення функції тазових органів за типом затримки.

За даними МРТ грудного відділу хребта виявлено ознаки мієлопатії з множинними дрібними розширеними судинами по ходу павутинної оболонки.

Селективна ангіографія (САГ) за стандартною методикою (шийного, грудного та поперекового відділів спинного мозку з контрастуванням загальних клубових артерій) не виявила аферентної артерії і АВМ.

Повторна МРТ спинного мозку з контрастуванням виявила ознаки венозної гіпертензивної мієлопатії з вираженими перимедулярними судинами, що є найбільш специфічною ознакою ДАВФ, але не виявило аферентну судину. Пацієнту виконано повторну САГ із селективним контрастуванням внутрішньої клубової артерії, що дало змогу діагностувати АВФ І типу (рис. 2, А–Г). Виконано мікрохірургічне роз'єднання АВМ. За даними селективної САГ (рис. 2, Д, Е), досягнуто тотального виключення дуральної фістули.

У післяопераційний період St.N.: нижній парапарез Frankel D, порушення функції тазових органів за типом затримки регресували.

Клінічний випадок № 2

Пацієнт К., 49 років, звернувся зі скаргами на прогресуюче погіршення ходи та сечовипускання. St.N.: нижній парапарез Frankel B, порушення функції тазових органів за типом затримки. За даними МРТ грудного відділу хребта виявлено ознаки мієлопатії із множинними дрібними розширеними судинами по ходу павутинної оболонки. Проведена за стандартною методикою САГ (шийного, грудного та поперекового відділів спинного мозку з контрастуванням загальних клубових артерій) не виявила аферентної артерії і АВМ.

Повторна МРТ спинного мозку з контрастуванням виявила ознаки венозної гіпертензивної мієлопатії з вираженими пе-

Рис. 2. Пацієнт Г., 59 років, з АВМ I типу: А–Г – селективна спінальна ангіографія: на рівні L5-S1 візуалізовано артерію, яка живить артеріовенозну фістулу та відходить від правої внутрішньої клубової артерії (позначено білою стрілкою), і дренажувальну вену (обведено колом); Д, Е – післяопераційна селективна спінальна ангіографія. Досягнуто тотального виключення дуральної фістули (місце попереднього розташування фістули обведено колом)

римедулярними судинами, але не виявила аферентної судини. Пацієнту виконано повторну САГ із селективним контрастуванням внутрішньої клубової артерії, що дало змогу діагностувати АВФ I типу з аферен-

том від лівої внутрішньої клубової артерії (рис. 3, А–В).

Проведено емболізацію артерії, яка живить ДАВФ, клеєм із групи ціаноакрилатів. За даними САГ одразу після емболізації

Рис. 3. Пацієнт К., 49 років, з АВМ I типу: А–В – селективна спінальна ангіографія: на рівні L5-S1 візуалізовано артерію, яка живить артеріовенозну фістулу та відходить від лівої внутрішньої клубової артерії (позначено червоною стрілкою), і вену, котра дрениує (позначено білою стрілкою); Г, Д – етапи ендovasкулярного роз'єднання АВФ. Досягнуто тотального виключення дуральної фістули (місце попереднього розташування фістули обведено колом)

(рис. 3, Г, Д) досягнуто тотального виключення дуральної фістули.

У післяопераційний період St.N.: нижній парапарез Frankel B-C, порушення функції тазових органів регресували.

Через 1 міс стан хворого погіршився: збільшився неврологічний дефіцит – нижній парапарез із Frankel C поглибився до Frankel B, знову виникли порушення функції тазових органів.

За даними контрольної САГ (рис. 4), при контрастуванні лівої внутрішньої клубової артерії фістула не функціонує. Проведено мікрохірургічне роз'єднання АВФ. Контрольне ангіографічне обстеження засвідчило тотальне виключення ДАВФ.

У післяопераційний період St.N.: нижній парапарез Франсел С, порушення функції тазових органів зберігаються.

Рис. 4. Пацієнт К., 49 років, з АВМ I типу: А – селективна ангіографія лівої внутрішньої клубової артерії: фістула не функціонує (місце попереднього розташування фістули обведено колом); Б – селективна спінальна ангіографія: на рівні L5-S1 візуалізовано артерію, яка живить артеріовенозну фістулу та відходить від правої внутрішньої клубової артерії, і вену, котра дрениує (позначено білою стрілкою); В – контрольна селективна ангіографія: тотальне виключення дуральної фістули після мікрохірургічного роз'єднання (місце попереднього розташування фістули обведено колом)

Обговорення

Установлено, що АВМ І типу (дуральна фістула) є найчастішою АВМ спинного мозку (70 % випадків судинної патології цієї локалізації) [8]. Трапляється в усіх відділах спинного мозку. Представлені нами випадки є рідкісними, в світовій літературі є лише поодинокі згадки про ДАВФ поперекового відділу з аферентами від внутрішніх клубових артерій. Із 1972 до 2014 р. повідомлено про менше ніж 50 випадків ураження судин хребта, котрі кровопостачалися із внутрішніх клубових артерій [9]. Верифікація венозної гіпертензивної мієлопатії з вираженими перимедулярними судинами при МРТ є патогномонічною ознакою ДАВФ. Якщо стандартна спінальна ангіографія не дає змогу верифікувати аференти ДАВФ, то її слід доповнити селективною катетеризацією внутрішніх клубових артерій, звідки можуть брати початок артерії, які живлять фістулу.

На нашу думку, для ефективного роз'єднання спінальних АВМ І типу можна використовувати обидва методи лікування, коригуючи підхід залежно від можливості селективної катетеризації аферентів співустя. Ми погоджуємося з Т. Krings зі співавт. і

К. Jellema зі співавт. [8, 10], що облітерація дренувальної вени є запорукою ефективності операції. На нашу думку, в другому клінічному спостереженні саме неповна облітерація дренувальної вени під час першої операції спричинила рецидив ДАВФ.

Мікрохірургічне роз'єднання ДАВФ дає змогу досягти тотального її виключення і не поглиблює неврологічний дефіцит у ранній післяопераційний період. Цей метод є безпечним та високоефективним [10, 11].

Висновки

Артеріовенозні фістули різноманітні за клінічними виявами та рентгеноанатомією. Верифікація венозної гіпертензивної мієлопатії з наявністю виражених перимедулярних судин при МРТ є найбільш специфічною ознакою ДАВФ. Якщо стандартна спінальна ангіографія не дає змогу верифікувати аференти ДАВФ, то її слід доповнити селективною катетеризацією внутрішніх клубових артерій, звідки можуть брати початок артерії, які живлять фістулу.

Вивчення ангіоархітекτονіки артеріовенозної фістули за даними ангіографії дає змогу вибрати метод хірургічного лікування для ефективного та радикального її роз'єднання.

References

1. Bao YH, Ling F. Classification and therapeutic modalities of spinal vascular malformations in 80 patients. *Neurosurgery*. 1997 Jan;40(1):75-81. PMID:971827. <https://doi.org/10.1227/00006123-199701000-00017>.
2. Anson JA, Spetzler RF. Classification of spinal arteriovenous malformation and implication for treatments. *BNI Q*. 1992;8:2-8.
3. Tissen TP. Jendovaskuljarnoe lechenie arteriovenoznyh malformacij spinного mozga. M.: Aljans Press; 2006. P. 358. (in Russian)
4. Grinberg M. Nejrohirurgija. Per. s ang. M.: MED-Press-inform; 2010. 1008 p. (in Russian)
5. Merland JJ, Riche MC, Chiras J et al. Intraspinal extramedullary arteriovenous fistulae draining into the medullary veins. *J. Neuroradiol*. 1980;7(4):271-320. PMID:7276996.
6. Jellema K, Tijssen C, van Gijn J et al. Spinal dural arteriovenous fistulas: a congestive myelopathy that initially mimics a peripheral nerve disorder. *Brain*. 2006;129 (Pt 12):3150-64. PMID: 16921175. DOI: 10.1093/brain/awl220
7. Schaaf TJ, Salzman KL, Stevens EA et al. Sacral origin of a spinal dural arteriovenous fistula: case report and review. *Spine*. 2002;27(8):893-7. PMID: 11935116. DOI: 10.1097/00007632-200204150-00023
8. Krings T. Vascular malformations of the spine and spinal cord. *Clin Neuroradiol*. 2010 Mar;20(1):5-24. doi:10.1007/s00062-010-9036-6.
9. Borghei-Razavi H, Weber W, Daabak KM et al. Sacral dural arteriovenous fistula presented as an acute isolated thoracic myelopathy: clinical and surgical importance. *Clin Neurol Neurosurg*. 2014;124:185-7. doi: 10.1016/j.clineuro.2014.06.040. Epub 2014 Jul 6.
10. Krings T, Mull M, Gilsbach JM, Thron A. Spinal vascular malformations. *Eur Radiol*. 2005 Feb;15(2):267-78. Review. PMID: 15538580. DOI: 10.1007/s00330-004-2510-2.
11. Jellema K, Sluzewski M, van Rooij WJ et al. Embolization of spinal dural arteriovenous fistulas: importance of occlusion of the draining vein. *J Neurosurg Spine*. 2005 May;2(5):580-3. PMID: 15945432. DOI: 10.3171/spi.2005.2.5.0580.

ОПЫТ ЛЕЧЕНИЯ БОЛЬНЫХ С РЕДКИМИ АРТЕРИОВЕНОЗНЫМИ ФИСТУЛАМИ СПИННОГО МОЗГА

Д.В. ЩЕГЛОВ, О.Е. СВИРИДЮК, А.В. НАЙДА, Ю.М. САМОНЕНКО, О.В. СЛОБОДЯН
ГУ «Научно-практический Центр эндоваскулярной нейрорентгенохирургии НАМН Украины», г. Киев

Цель работы – изучить распространенность, клинические проявления, особенности диагностики и эффективность лечения редких артериовенозных фистул спинного мозга.

Материалы и методы. За период с 2004 по 2019 г. ГУ «Научно-практический Центр эндоваскулярной нейрорентгенохирургии НАМН Украины» было обследовано и пролечено 43 больных со спинальными дуральными артериовенозными фистулами (ДАВФ) – артериовенозными мальформациями (АВМ) I типа по классификации Anson и Spetzler (1992). Только у 2 (4,6 %) пациентов выявлено отхождение афферента от внутренней подвздошной артерии с фистулой на уровне L5-S1. Для диагностики ДАВФ применили магнитно-резонансную томографию и спинальную селективную субтракционную ангиографию. При эндоваскулярном вмешательстве использовали жидкий эмболизант цианоакрилатной группы и трансфеморальный доступ, при микрохирургическом вмешательстве – задний срединный доступ и одноуровневую гемиламинэктомию.

Результаты. Тотальное исключение ДАВФ из кровотока достигнуто у обоих пациентов. У одного пациента проведено микрохирургическое разъединение ДАВФ, другой прооперирован комбинацией эндоваскулярного и микрохирургического методов. У обоих пациентов отмечено неврологическое улучшение в послеоперационный период.

Выводы. Артериовенозные фистулы разнообразны по клиническим проявлениям и рентгеноанатомии. Верификация венозной гипертензивной миелопатии с наличием выраженных перимедулярных сосудов при магнитно-резонансной томографии является наиболее специфическим признаком ДАВФ. Если стандартная спинальная ангиография не позволяет верифицировать афференты ДАВФ, то ее следует дополнить селективной катетеризацией внутренних подвздошных артерий, откуда могут брать начало питающие фистулу артерии. Изучение ангиоархитектоники артериовенозной фистулы по данным ангиографии позволяет выбрать метод хирургического лечения для обеспечения ее эффективного и радикального разъединения.

Ключевые слова: спинальная артериовенозная мальформация; дуральная артериовенозная фистула; спинальная ангиография.

EXPERIENCE IN THE TREATMENT OF PATIENTS WITH RARE ARTERIOVENOUS SPINAL FISTULAS

D.V. SHCHEHLOV, O.E. SVYRYDIUK, A.B. NAIDA, YU.M. SAMONENKO, O.V. SLOBODIAN
SO «Scientific-practical Center of endovascular neuroradiology NAMS of Ukraine», Kyiv

Objective – to study the prevalence, clinical manifestations, features of diagnostics and effectiveness of treatment of rare arteriovenous spinal fistulas.

Materials and methods. From 2004 to 2019 in SO «Scientific-practical Center of endovascular neuroradiology NAMS of Ukraine» were examined and treated 43 patients with spinal dural arteriovenous fistulas (DAVF) – type I arteriovenous malformations according to the Anson and Spetzler classification (1992). Only 2 (4.6 %) patients had an afferent effusion from the internal iliac artery with fistula at L5-S1 level. Magnetic resonance imaging and spinal selective subtraction angiography were used to diagnose arteriovenous fistulas. Liquid cyanoacrylate embolizant and transfemoral access were used for endovascular intervention, and posterior median access and single-level hemilaminectomy for microsurgical intervention.

Results. Total DAVF exclusion from blood flow was achieved in both patients. One patient underwent microsurgical separation of DAVF, the other one was operated by a combination of endovascular and microsurgical techniques. Neurological improvement in the postoperative period was noted in both patients.

Conclusions. Arteriovenous fistulas are diverse in clinical manifestations and radiographs. Verification of venous hypertensive myelopathy with the presence of pronounced perimedullary vessels on data of magnetic resonance imaging is the most specific feature of DAVF. If standard spinal angiography does not allow DAVF afferents to be verified it should be supplemented by selective catheterization of the internal iliac arteries, from where the arterial fistula can originate. The study of angioarchitectonics of arteriovenous fistula, according to angiography, makes it possible to choose surgical treatment to ensure effective and radical separation of arteriovenous fistula.

Key words: spinal arteriovenous malformation; dural arteriovenous fistula; spinal angiography.