

· 论 著 ·

软脑膜动静脉瘘的血管内介入治疗分析

安学锋 赵曰圆 秦 杰 吕福群 向伟楚 潘 力 杨 铭 马廉亭

【摘要】目的 探讨软脑膜动静脉瘘(PAVF)的临床特征、影像学特征、血管内介入治疗方法及疗效。**方法** 回顾性分析2013年12月至2019年12月血管内介入治疗的9例PAVF的临床资料。**结果** 年龄3~23岁,平均(12.3±6.0)岁;头痛5例(颅内出血3例),癫痫发作3例,肢体无力1例。大脑后动脉供血2例,大脑中动脉供血3例,大脑前动脉供血2例,小脑后下动脉供血1例,大脑中动脉+大脑前动脉供血1例;皮层静脉引流8例,深部静脉引流1例。Onyx胶+弹簧圈栓塞治疗8例,单纯弹簧圈栓塞治疗1例。术后即刻造影显示9例均达到治愈性栓塞。术后未出现手术相关并发症。9例术后随访1~8个月,完成DSA随访6例,320-CTA随访2例,MRA随访1例;9例瘘口均未见复发;8例症状完全缓解,1例口服抗癫痫药物控制癫痫。**结论** PAVF是一种罕见的脑血管病,以儿童多见,临床表现多样化;随医学技术的发展,治疗首选血管内介入栓塞,是一种安全、有效的治疗方案。

【关键词】 软脑膜动静脉瘘;血管内治疗;临床特征;影像学特征;疗效

【文章编号】 1009-153X(2022)08-0625-04 **【文献标志码】** A **【中国图书资料分类号】** R 743; R 815.2

Clinical analysis of endovascular interventional therapy for patients with pial arteriovenous fistula: report of 9 cases and literature review

AN Xue-feng, ZHAO Yue-yuan, QIN Jie, LÜ Fu-qun, XIANG Wei-chu, PAN Li, YANG Ming, MA Lian-ting. Department of Neurosurgery, General Hospital of Central Theater Command, PLA, Wuhan 430070, China

【Abstract】 Objective To investigate the clinical and imaging features of the patients with pial arteriovenous fistula (PAVF), and to explore the methods and efficacy of endovascular interventional treatment for the patients with PAVF. **Methods** The clinical data of 9 patients with PAVF who underwent endovascular treatment from December 2013 to December 2019 were retrospectively analyzed. **Results** The age ranged from 3 to 23 years, with an average of (12.3±6.0) years. Five patients suffered from headache including 3 intracranial hemorrhage, 3 suffered from epilepsy, and 1 suffered from limb weakness. The arteries supplying PAVF included posterior cerebral artery in 2 patients, middle cerebral artery in 3, anterior cerebral artery in 2, posterior inferior cerebellar artery in 1, and middle cerebral artery + anterior cerebral artery in 1. The draining veins included cortical venous drainage in 8 patients and deep venous drainage in 1. Eight patients were treated with Onyx glue+coil embolization, and 1 with coil embolization alone. Immediate postoperative angiography showed curative embolization in 9 patients. There were no postoperative complications related to embolization. Nine patients were followed up for 1~8 months after embolization, 6 patients were followed up by DSA, 2 by 320-CTA, and 1 by MRA. There was no recurrence of fistula. The symptoms were completely relieved in 8 patients, and 1 patient took antiepileptic drugs to control epilepsy. **Conclusions** PAVF is a rare cerebrovascular disease, which is more common in children and has diverse clinical manifestations. With the development of medical technology, endovascular interventional embolization, a safe and effective treatment method, is the first choice for treatment of PAVF.

【Key words】 Pial arteriovenous fistula; Endovascular treatment; clinical features; Imaging features; Efficacy

软脑膜动静脉瘘(pial arteriovenous fistulas, PAVF)是一种罕见的脑血管畸形,占颅内血管畸形的1.6%~4.7%,常常由一支或多支供血动脉直接与静脉沟通,无畸形血管巢或毛细血管床,因动脉直接汇入静脉,流速快、流量高,常引起瘘口附近回流静

脉呈瘤样扩张改变^[1,2]。PAVF的临床表现各异,部分病人无任何神经系统症状,部分病人可表现为头痛、癫痫、局灶性神经功能缺失及颅内出血。目前,PAVF的确切病因尚不明确,可以是先天性的,也有的继发于医源性操作或外伤^[3-5]。2013年12月至2019年12月血管内介入治疗PAVF共9例,结合文献总结分析如下。

1 资料与方法

1.1 一般资料 9例中,男3例,女6例;年龄3~23岁,

doi:10.13798/j.issn.1009-153X.2022.08.001

作者单位:430070 武汉,中国人民解放军中部战区总医院神经外科(安学锋、赵曰圆、秦 杰、吕福群、向伟楚、潘 力、杨 铭、马廉亭)

通讯作者:潘 力,E-mail:plainfat@163.com

平均(12.3±6.0)岁。头痛5例(颅内出血3例),癫痫发作3例,肢体乏力1例。

1.2 影像学表现 术前行头颅CT或MRI检查并经全脑血管造影明确,术中采用3D-DSA影像融合技术明确瘘口特征,大脑后动脉供血2例,大脑中动脉供血3例,大脑前动脉供血2例,小脑后下动脉供血1例,大脑中动脉+大脑前动脉供血1例;皮层静脉引流8例,深部静脉引流1例。

1.3 治疗方法 均应用全麻和静脉肝素化,均采用Seldinger技术常规穿刺右侧股动脉,置入造影管至双侧颈内动脉、椎动脉及颈外动脉造影,患侧血管多角度投照及三维旋转造影明确病变后,根据三维图像、融合图像评估供血动脉、瘘口及回流静脉,选取最佳手术角度。6例使用Scepter球囊微导管至瘘口附近降低供血动脉血流后再行弹簧圈和Onyx胶栓塞治疗,术后即刻常规行患侧血管二维和三维造影评估瘘口栓塞情况。术后控制性降血压,收缩压控制在100~120 mmHg防止过度灌注性出血。

2 结果

2.1 栓塞结果 Onyx胶+弹簧圈栓塞治疗8例,单纯弹簧圈栓塞治疗1例。术后即刻造影显示9例均达到治愈性栓塞。术后未出现手术相关并发症。

2.2 随访结果 9例术后影像随访1~8个月,完成DSA随访6例,320-CTA随访2例,MRA随访1例;9例瘘口均未见复发。8例症状完全缓解,1例口服抗癫痫药物控制癫痫。

2.3 典型病例

病例1:11岁女孩,因发作性意识1个月余入院。入院后头颅320-CTA检查显示右侧枕部PAVF。完善术前准备,行全脑血管造影及血管内栓塞治疗,术中瘘口治愈性栓塞。术后5个月复查脑血管造影未见瘘口复发(图1)。

病例2:15岁男孩,因突发意识不清伴左侧肢体抽搐3d余入院。完善术前准备,行全脑血管造影及血管内栓塞治疗,术中瘘口治愈性栓塞。术后4个月复查全脑血管造影术未见复发(图2)。

3 讨论

PAVF发病率极低,确切的自然史尚不明确。文献报道以儿童多见,可能因胚胎发育异常所致^[6]。本文9例中,最常见的临床症状是头痛,其次是癫痫发作、神经功能缺失及脑出血。Weon等^[2]报道PAVF病人常见症状是癫痫发作(23%)、神经功能缺失

(3%)等。新生儿表现为先天性心功能不全,婴幼儿则为巨颅症和局灶性神经功能缺失^[7]。

因PAVF的血流量高,扩张的引流静脉壁厚薄不均,高血流冲击下容易出血,但具体出血风险尚不明确。有研究报道8例保守治疗的PAVF,其中5例死亡^[8]。PAVF常导致颅内出血^[2],所以,高流量且合并皮层静脉迂曲扩张的PAVF,为避免致死性出血风险,仍需要积极手术治疗。除了常规术前检查评估外,头颅CT、MRI、MRA及CTA检查能够帮助了解病灶有无水肿占位效应、静脉瘤内血栓及钙化情况,初步了解供血动脉及回流方式。DSA和3D-DSA仍然是诊断PAVF的金标准,能够清晰显示供血动脉、瘘口部位大小、引流静脉及静脉瘤情况,能够动态观察血流量大小及速度,帮助术中明确瘘口血管构筑、指导手术策略。

PAVF的治疗方法包括血管内介入治疗、显微手术灼闭瘘口或两者联合的复合手术治疗,治疗原则是通过手术闭塞瘘口,保留引流静脉的完整,从而保护神经功能、预防术后灌注过度性出血。显微手术是根据显微手术切除脑动静脉畸形理念转换而来,较大范围的显露PAVF,准确辨别供血动脉并予以阻断、灼闭,之后静脉瘤、扩张迂曲静脉会塌陷^[9]。Goel等^[10]报道14例PAVF,成功行显微手术灼闭瘘口,未发生手术相关并发症。Da等^[11]报道2例PAVF行显微手术治疗,术中切除部分扩张静脉以减少其占位效应,未发生手术相关并发症。这提示显微手术是治疗PAVF的有效方法。

然而,Madsen等^[6]总结文献报道显示,83.7%的PAVF选择血管内栓塞治疗。而且,随着介入技术及材料的更新换代,加上部分病变位于颅底或显微手术难以接近的位置,血管内介入治疗因其创伤小且更易血管内直达瘘口栓塞,越来越多的PAVF病人采用血管内栓塞治疗。本文9例均应用血管内介入治疗。血管内栓塞治疗可以使用弹簧圈、Onyx胶、NBCA胶或者联合使用^[12]。Lv等^[13]报道7例PAVF单独使用可解脱弹簧圈栓塞且达到完全治愈栓塞。Limaye等^[14]使用NBCA胶栓塞治疗5例PAVF,供血动脉均达到闭塞且未误栓塞回流静脉。这提示NBCA胶和Onyx胶栓塞PAVF是可行的。另外,Ye和Zhang^[15]报道使用球囊辅助栓塞PAVF。由于PAVF的血流动力学特点,考虑到供血动脉血流量大、速度快,且伴有迂曲扩张的回流静脉,为防止栓塞材料移位、逃逸导致误栓塞,本文9例均使用Scepter球囊微导管阻断或减缓血流,然后经微导管

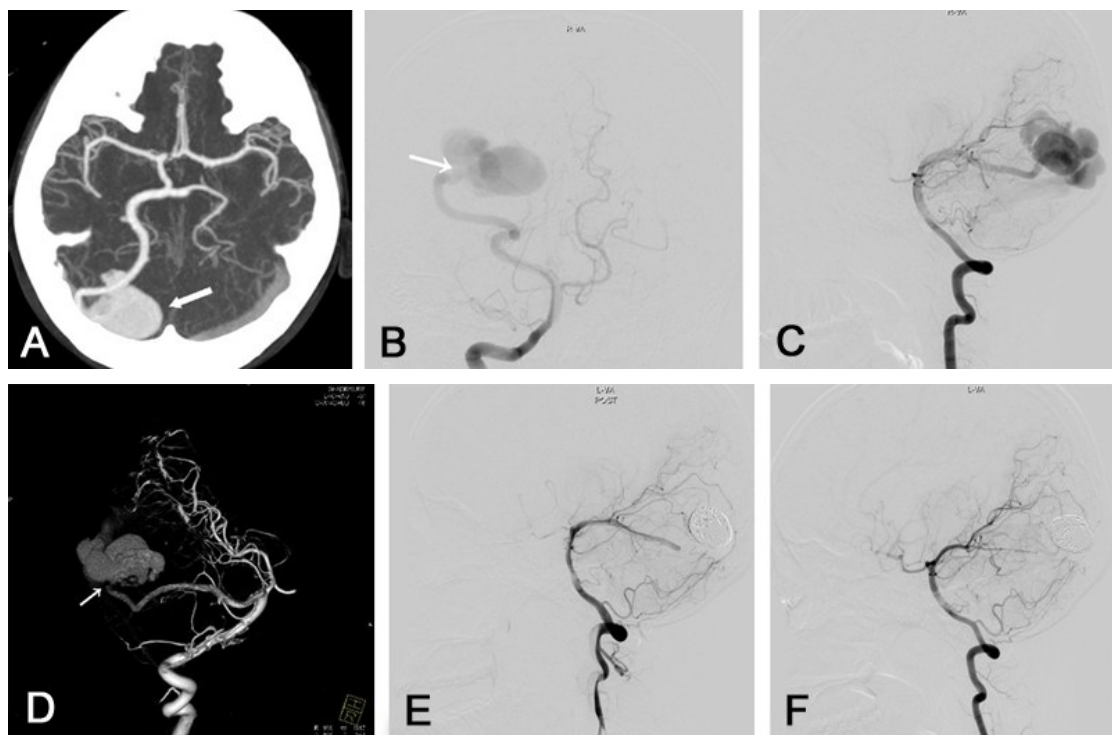


图1 软脑膜动静脉瘘血管内栓塞治疗前后影像

A. 栓塞前CTA轴位示右侧枕叶血管畸形, ↑示扩张静脉瘤; B. 栓塞前DSA正位像, ↑示软脑膜动静脉瘘供血动脉及瘘口; C. 栓塞前DSA侧位像显示供血动脉、扩张迂曲回流静脉; D. 栓塞前3D-DSA, ↑示瘘口; E. 栓塞术后即刻造影显示软脑膜动静脉瘘不显影; F. 栓塞术后5个月复查DSA未见复发、残留

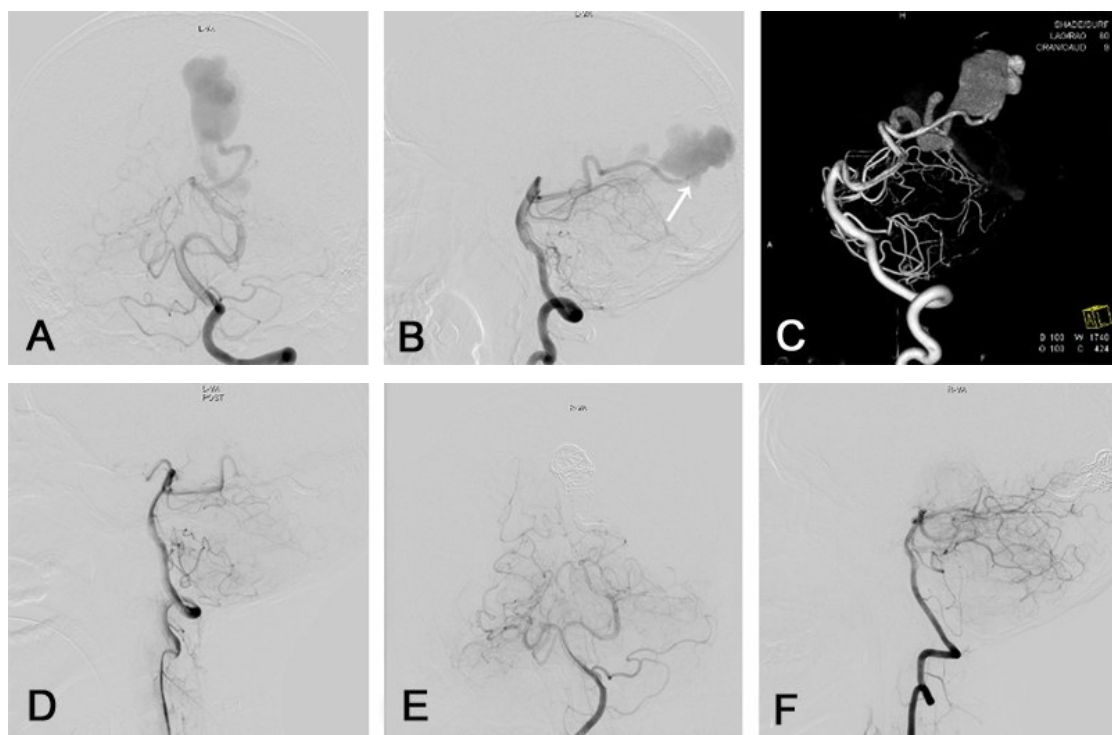


图2 软脑膜动静脉瘘血管内栓塞治疗前后影像

A. 栓塞前DSA正位像示左侧枕叶软脑膜动静脉瘘; B. 栓塞前DSA侧位像, ↑示软脑膜动静脉瘘供血动脉及瘘口; C. 栓塞前3D-DSA显示软脑膜动静脉瘘; D. 栓塞术后即刻造影显示软脑膜动静脉瘘不显影; E、F. 栓塞术后4个月复查DSA正、侧位像未见复发、残留

交替使用弹簧圈栓塞瘘口,再用 Onyx 胶栓塞治疗,弹簧圈与 Onyx 胶混合铸形后缓慢撤出 Scepter 球囊导管,术后即刻造影见 8 例瘘口完全闭塞;1 例瘘口仍有少量显影,给予微导管内缓慢注射丝线线段至瘘口闭塞。这提示球囊的辅助使用能够帮助达到安全、有效、治愈性栓塞的目的,但同时在使用球囊微导管的过程中,需注意避免过度充盈球囊导致血管损伤,尤其是供血动脉迂曲时,因导管较硬,在球囊微导管到位过程中,建议采用“漂浮“球囊技术”,以降低血管损伤可能。

血管内栓塞术后颅内正常灌注压突破甚至出血是 PAVF 介入术后潜在的并发症,可能原因是栓塞术后回流静脉或静脉窦内血栓形成,确切病因尚不明确。本文病例术后未发生颅内正常灌注压突破的并发症。PAVF 介入术后需密切关注血压情况,我们采用药物控制性降血压,收缩压控制在 100~120 mmHg,以减少此并发症。

总之,PAVF 是一种罕见的脑血管病,临床症状多表现多样化,多因头痛、癫痫发作等就诊,需早期诊断干预。随着医学技术的发展,治疗方案首选血管内介入治疗,血管内栓塞治疗是一种安全、有效的治疗方案,瘘口闭塞治愈率高,疾病总体预后良好。

【参考文献】

[1] Lv X, Jiang C, Li Y, *et al.* Clinical outcomes of endovascular treatment for intracranial pial arteriovenous fistulas [J]. *World Neurosurg*, 2010, 73(4): 385-390.

[2] Weon YC, Yoshida Y, Sachet M, *et al.* Supratentorial cerebral arteriovenous fistulas (AVFs) in children: review of 41 cases with 63 non choroidal single-hole AVFs [J]. *Acta Neurochir (Wien)*, 2005, 147(1): 17-31.

[3] Medhi G, Gupta AK, Saini J, *et al.* Pial arteriovenous fistula: a clinical and neuro-interventional experience of outcomes in a rare entity [J]. *Indian J Radiol Imaging*, 2020, 30(3): 286-293.

[4] Okazaki T, Sakamoto S, Ishii D, *et al.* A pial arteriovenous fistula in infancy as the presenting manifestation of heredi-

tary hemorrhagic telangiectasia [J]. *World Neurosurg*, 2019, 122: 322-325.

[5] Lin T, Chang T, Wu Y, *et al.* De novo formation of pial arteriovenous fistulas: systematic review of acquired lesions and their clinical differences compared with primary lesions [J]. *World Neurosurg*, 2019, 128: e276-e282.

[6] Madsen PJ, Lang SS, Pisapia JM, *et al.* An institutional series and literature review of pial arteriovenous fistulas in the pediatric population [J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2013, 12(4): 344.

[7] Hetts SW, Keenan K, Fullerton HJ, *et al.* Pediatric intracranial nongalenic pial arteriovenous fistulas: clinical features, angioarchitecture, and outcomes [J]. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2012, 33(9): 1710-1719.

[8] Nakiri GS, Abud TG, Oliveira RS, *et al.* Endovascular treatment of intracranial pial arteriovenous fistula [J]. *Arq Neuropsiquiatr*, 2010, 68(3): 463-465.

[9] Goel A. Arteriovenous malformations: current status of surgery [J]. *Neurol India*, 2005, 53(1): 11-13.

[10] Goel A, Jain S, Shah A, *et al.* Pial arteriovenous fistula: a brief review and report of 14 surgically treated cases [J]. *World Neurosurg*, 2018, 110: e873-e881.

[11] Da SMW, De ALA, De FCB, *et al.* Surgical treatment of the intracranial pial arteriovenous fistula [J]. *Surg Neurol Int*, 2015, 6: 102.

[12] 潘力,刘鹏,秦杰,等.儿童软脑膜动静脉瘘的血管内治疗(附 3 例报道及文献复习)[J]. *中国临床神经外科杂志*, 2017, 22(4): 209-212.

[13] Lv X, Li Y, Jiang C, *et al.* Endovascular treatment of brain arteriovenous fistulas [J]. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2009, 30(4): 851-856.

[14] Limaye US, Siddhartha W, Shrivastav M, *et al.* Endovascular management of intracranial pial arterio-venous fistulas [J]. *Neurol India*, 2004, 52(1): 87-90.

[15] Ye M, Zhang P. Transarterial balloon-assisted glue embolization of pial arteriovenous fistulas [J]. *World Neurosurg*, 2018, 115: e761-e767.

(2022-04-23 收稿, 2022-06-21 修回)