

· 论 著 ·

复合手术治疗硬脊膜外动静脉瘘合并硬脊膜动静脉瘘 1例并文献复习

李欢欢 宋雪倩 陈迎春 李俊 盛柳青 别毕洲 汪志忠 马廉亭

【摘要】目的 总结硬脊膜外动静脉瘘(SEDVAF)合并硬脊膜动静脉瘘(SDAVF)的复合手术治疗经验。**方法** 回顾性分析复合手术治疗的1例SEDVAF合并SDAVF的临床资料,并结合文献分析。**结果** 首先经动脉途径进行ONYX胶栓塞,因胶弥散效果不佳,仅封堵供血动脉,瘘口及引流静脉仍可显影;然后,开放性手术烧灼硬脊膜外扩张迂曲的静脉丛血管,但未剪开硬脊膜探查,术后7 d因并存SDAVF加重血流动力学改变并引起症状加重,再次行介入栓塞时处理SDAVF。术后6个月随访双下肢肌力恢复至4级,大小便功能正常。**结论** SEDAVF处理的关键在于闭塞瘘口及近端引流静脉,对于合并的SDAVF,可选择介入治疗。单纯SEDVAF,可选择开放性手术灼闭硬脊膜外扩张迂曲的静脉湖;SEDVAF合并SDAVF,可先行介入栓塞瘘口,解除脊髓静脉高压综合征及硬脊膜外静脉湖压迫症状;如仍未治愈,可行开放手术灼闭硬脊膜外扩张迂曲的静脉湖,解除对脊髓的压迫。

【关键词】 硬脊膜外动静脉瘘;硬脊膜动静脉瘘;复合手术

【文章编号】 1009-153X(2020)10-0667-03 **【文献标志码】** A **【中国图书资料分类号】** R 744.1; R 651.1²

Hybrid operation for spinal epidural arteriovenous fistula: report of one case and literature review

LI Huan-huan¹, SONG Xue-qian², CHEN Ying-chun¹, LI Jun¹, SHENG Liu-qing¹, BIE Bi-zhou¹, WANG Zhi-zhong¹, MA Lian-ting². 1. Department of Neurosurgery, The Third People's Hospital of Hubei Province, Jiangnan University, Wuhan 420032, China; 2. Department of Neurosurgery, General Hospital of Central Theater Command, PLA, Wuhan 430070, China

【Abstract】 Objective To explore the clinical manifestations, diagnosis and treatment of spinal epidural arteriovenous fistula (SEDVAF) associated with spinal dural arteriovenous fistula (SDAVF). **Methods** The clinical data of one patient with SEDVAF associated with SDAVF treated with hybrid operation were retrospectively analyzed, and the literatures were reviewed. **Results** First, ONYX glue was used to embolize the fistula via arterial approach. Due to the poor dispersion effect of the glue, only the blood supply artery was occluded, and the fistula and draining vein could still be seen on the DSA images. Then, the open operation was used to cauterize the spinal epidural expansion of the tortuous venous plexus, but the spinal dura mater was not cut for exploration. Seven days after the operation, the symptoms were aggravated due to the coexisting SDAVF, and the endovascular embolization was used to embolize the SDAVF. The follow-up at 6 months showed that the muscle strength of both lower limbs was recovered to grade 4 and the defecation function was normal. **Conclusions** The key to SEDVAF treatment is to occlude the fistula and the proximal draining vein, and the interventional therapy can be selected for the coexisting SDAVF. For simple SEDVAF, open surgery can be used to cauterize the tortuous venous lake of the spinal epidural. For SEDVAF associated with SDAVF, the interventional treatment can be first used to embolize the fistula to relieve the symptoms caused by spinal venous hypertension and the compression of the epidural venous lake. If it is still not cured, open surgery can be used to cauterize and occlude the venous lake of the spinal epidural expansion to relieve the compression on the spinal cord.

【Key words】 Spinal epidural arteriovenous fistula; Spinal dural arteriovenous fistula; Hybrid operation

硬脊膜外动静脉瘘(spinal epidural arterio-venous fistula, SEDVAF)是一种发生于脊柱旁动脉系

统与硬脊膜外静脉丛之间罕见的动静脉瘘^[1],临床主要表现为脊髓受压与出血,少数合并硬脊膜动静脉瘘(spinal dural arteriovenous fistula, SDAVF),引起脊髓静脉高压综合征。本文报道1例SEDVAF合并SDAVF,采用复合手术治疗,效果良好,现结合相关文献复习,总结诊治经验。

1 病例资料

55岁男性,因双侧下肢乏力3年逐渐加重伴小

doi:10.13798/j.issn.1009-153X.2020.10.003

基金项目:湖北省联合基金立项项目(WJ2019H385);武汉市医学科研项目(S201811230025)

作者单位:430032 武汉,江汉大学附属湖北省第三人民医院神经外科(李欢欢、陈迎春、李俊、盛柳青、别毕洲、汪志忠);430070 武汉,中国人民解放军中部战区总医院神经外科(宋雪倩、马廉亭)

通讯作者:李俊, E-mail:13006163722@163.com

便失禁4个月入院。既往腰椎间盘突出症行小针刀病史。入院体格检查:左侧下肢近端肌力4级、远端肌力3级,右侧下肢近端肌力3级、远端肌力3级;脐平面以下浅感觉减退,深感觉正常;小便失禁,大便正常。外院MRI T₂像示T5~L1脊髓前后呈高信号,脊髓背侧可见血管呈点状、虫蚀样流空影(图1A、1B)。我院DSA示双侧L4动脉及左侧L3动脉供血,于L4水平形成一扩张静脉湖,引流静脉向胸腰段双向引流,于脊髓背侧及腹侧均可见迂曲引流静脉(图1C)。将Marathon微导管至于左侧L4动脉根髓分支注入18% ONYX胶,弥散效果不佳,仅封堵L4供血动脉,瘘口及引流静脉仍可显影(图1D、1E)。栓塞后,在显微镜下行瘘口灼闭术,双极电凝烧灼硬脊膜外扩张迂曲的静脉丛血管,未剪开硬脊膜探查(图1F)。术后1 d双下肢肌力恢复正常。术后7 d突发双下肢肌力下降至0级,复查脊髓MRI T₂像示脊髓内高信号节段较前增加,脊髓背侧及腹侧均可见血管流空影(图1G)。急诊行脊髓血管造影,双侧L4动脉造影未见异常血管显影,左侧L3动脉造影可见于L4水平静脉湖,引流静脉向胸腰段引流,于脊髓背侧及腹侧均可见迂曲引流静脉(图1H、1I)。将Marathon微导管至于L4水平静脉湖处,注入18% ONYX胶,封堵瘘口及供血动脉,引流静脉仍见少量显影(图1J)。术后双下肢肌力立刻恢复至1级,复查MRI显示脊髓水肿减轻。术后6个月随访双下肢肌力恢复至4级,大小便正常。

2 讨论

2.1 SEDAVF的发病机制 目前,SEDAVF的发病机制尚不清楚。研究表明SEDAVF与既往手术或创伤有关^[2]。大多数SEDAVF可能是特发性的。在某些情况下,外科手术被认为是主要原因,因为一条硬膜外小动脉的机械损伤可引起小动静脉瘘。也有学者提出,手术中断硬膜外静脉引流可导致静脉血栓形成并随后出现异常再通,其机制与后天性硬膜外静脉瘘相似。

2.2 SEDAVF的分类及临床表现 SEDAVF主要根据瘘口部位及其引流静脉特点进行分类^[3]。单纯SEDAVF为I型,主要临床表现为脊髓压迫症状及继发硬膜外出血,不会引起脊髓静脉高压。SEDAVF同时合并SDAVF为II型,可引起脊髓静脉高压导致脊髓水肿,与SDAVF及髓周动静脉瘘难以鉴别,临床表现由静脉引流方式决定,脊髓压迫及脊髓静脉高压是这类疾病引起神经功能障碍的两个最主要原

因^[4],仅有少数病人引起硬脊膜外出血,还有一些是无症状性的。

伴硬膜下静脉引流SEDAVF多见于60岁左右的病人^[5],胸腰段多见,与SDAVF相似,常引起脊髓静脉高压。这是因为下胸段及腰段硬脊膜内外有丰富的静脉血管网络,并且很容易受到创伤。这些病变通常表现为脊髓病、感觉和运动神经根括约肌功能障碍,Valsalva(增加硬膜内充血)常常并不会引起症状的短暂恶化。和SDAVF相似,这些症状呈渐进性缓慢进展。由静脉高压导致的血管性水肿是可逆的,而由静脉性梗塞导致的细胞性水肿不可逆的。因此,早期诊断和治疗是取得良好的效果的关键,因为静脉充血会在短时间内导致不可逆的静脉梗塞。

不伴硬膜下静脉引流SEDAVF发病高峰年龄在30岁左右,常导致因硬膜外静脉丛扩张引起的压迫性脊髓受损或硬膜外神经根受压引起的神经根损害。这类病变更常见于颈部及上胸段。

2.3 SEDAVF与SDAVF鉴别 SEDAVF瘘口位于硬脊

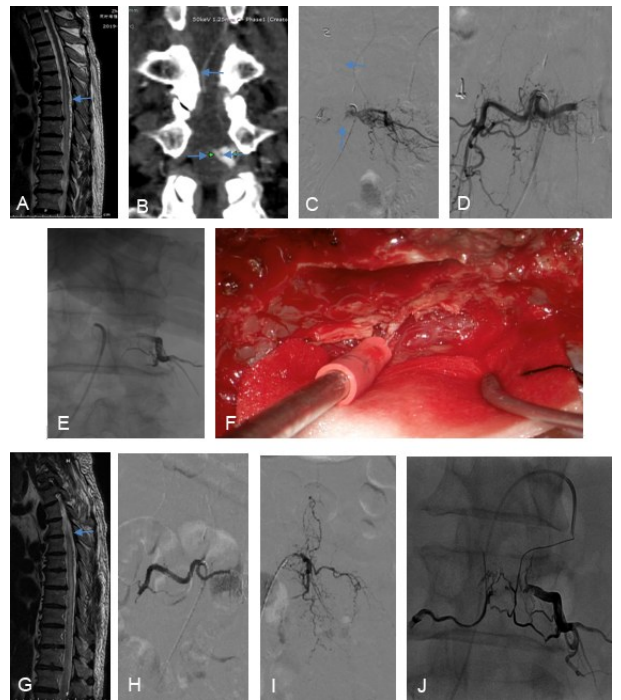


图1 复合手术治疗硬脊膜外动静脉瘘

A. 术前MRI矢状位,↑示脊髓水肿及血管留空影;B. 术前CTA,↑示L4瘘口及部分引流静脉;C. 术前脊髓血管造影,↑示L4硬脊膜外动静脉瘘扩张静脉湖及引流静脉;D、E. 第一次栓塞仅封堵左侧L4供血动脉;F. 开放性手术可见硬脊膜外异常血管;G. 开放性手术后复查MRI,↑示脊髓水肿平面较前进展;H. 开放性手术后脊髓造影可见瘘口存在及扩张静脉湖;I. 开放性手术后造影显示左侧L3向瘘口供血;J. 再次栓塞L3动脉分支后造影显示胶弥散情况

膜外,在硬脊膜外形成静脉湖,静脉引流起源于静脉湖;而SDAVF瘘口位于神经根发出的硬膜处,引流静脉直接向髓外引流,不伴有硬脊膜外静脉湖及硬脊膜静脉引流。典型的SDAVF通常以逆行方式通过神经根髓静脉流入脊髓表面的纵向静脉网。

2.4 治疗 SEDAVF的治疗方法主要有血管内介入治疗与开放性手术治疗或两者先后或同时联合应用的复合手术治疗。治疗的标准在于瘘口的闭塞及近瘘口引流静脉的闭塞^[6]。目前,文献报道大约有2/3的病人采用血管内治疗方式。Huang等^[5]进行系统综述报道血管内治疗后瘘即刻闭塞率为55%,随访闭塞率达到92%,91%的病人临床症状改善,只有3%病人临床症状加重;开放性手术后瘘即刻闭塞率在74%,随访闭塞率达到87%,84%的病人临床症状改善,只有9%的病人临床症状加重。

2.4.1 血管内治疗 对合并硬脊膜下引流者,血管内治疗的关键在于闭塞瘘口近瘘口引流静脉,否则容易复发。经动脉途径栓塞的难点在于供血动脉往往细小且迂曲微导管难以到达瘘口。对单纯SEDAVF重点在于栓塞瘘口及部分静脉湖,过度栓塞扩张的静脉湖会引起占位效应,导致脊髓受压症状加重。

2.4.2 显微手术治疗 显微手术治疗一般是针对难以用血管内治疗或血管内治疗失败的病例。手术治疗通常为直接电灼闭塞瘘口,并电灼硬脊膜外静脉湖及引流静脉;如合并SDAVF,重点在切开硬脊膜电灼硬脊膜上的瘘口及近瘘口横行静脉,对脊髓表面迂曲扩张的引流静脉切不可电灼,因这些迂曲扩张的引流静脉是脊髓正常引流静脉,脊髓静脉高压所致。手术治疗的优点是有机机会同时进行减压和闭塞多个供血动脉及瘘口,从而减少SEDAVF相关的占位效应,尤其是对单纯硬膜外静脉引流的类型。然而,Niizuma等^[7]报道4例中,3例在没有闭塞静脉湖而硬膜内引流静脉切断治疗后完全闭塞;1例不成功的孤立引流静脉结扎中,存在多个硬膜内引流静脉,提示瘘更为复杂。由于瘘口常常位于脊柱腹侧,这使得从后外侧入路充分暴露变得困难。对于复杂病例可采用复合手术治疗。

2.3 经验总结 本文病例以脊髓静脉高压表现入院,最初怀疑为SDAVF^[8,9],DSA示一扩张静脉湖及脊髓腹侧及背侧均见引流静脉,与SEDAVF有关,也与SDAVF有关。因此,本文病例治疗原则应兼顾二者,既要处理硬脊膜外静脉湖可能对脊髓产生的压迫症状与出血,又要处理脊髓静脉高压导致的脊髓水肿缺血。我们先选择血管内介入栓塞,由于对血

管构筑认识不充分仅栓塞L4供血动脉未闭塞瘘口、近瘘口静脉湖及引流静脉未达到治疗目的,之后,进行开放性手术,虽然封闭了硬膜外的瘘口及硬膜外静脉湖,但未闭塞硬脊膜上的瘘口,使SDAVF因血流增加致脊髓静脉高压加重导致脊水肿加重。立即行二次介入治疗,闭塞了硬脊膜上瘘口硬脊膜外残留静脉湖,降低了脊髓静脉高压,使脊髓水肿消失,症状显著恢复。随访双下肢肌力恢复至4级。

综上所述,对于SEDAVF的处理关键在于闭塞瘘口及静脉湖与引流静脉的闭塞,对于合并硬脊膜静脉引流的类型可选择介入治疗,对于复杂病例可选择复合手术。

【参考文献】

- [1] Elkordy A, Endo T, Sato K, *et al.* Exclusively epidural spinal metamer arteriovenous shunts: case report and literature review [J]. *Spine J*, 2015, 15: e15-e22.
- [2] Torok C, Laufer I, Gailloud P. Spontaneous resolution of a thoracic spinal epidural arteriovenous fistula caused by stabbing injury [J]. *Spine*, 2013, 38: E683-686.
- [3] Clarke MJ, Patrick TA, White JB, *et al.* Spinal extradural arteriovenous malformations with parenchymal drainage: venous drainage variability and implications in clinical manifestations [J]. *Neurosurg Focus*, 2009, 26: E5.
- [4] 祝源,杨铭,马廉亭,等. 脊髓静脉高压综合征的病因分析及避免误诊的对策[J]. *中国临床神经外科杂志*, 2019, 24(1):1-9.
- [5] Huang W, Gross BA, Du R. Spinal extradural arteriovenous fistulas [J]. *J Neurosurg Spine*, 2013, 19: 582-590.
- [6] Ramanathan D, Levitt MR, Sekhar LN, *et al.* Management of spinal epidural arteriovenous fistulas: interventional techniques and results [J]. *J Neurointerv Surg*, 2014, 6: 144-149.
- [7] Niizuma K, Endo T, Sato K, *et al.* Surgical treatment of spinal extradural arteriovenous fistula with parenchymal drainage: report on 5 cases [J]. *Neurosurgery*, 2013, 73(2 Suppl Operative): onsE287-294.
- [8] 马廉亭. 脊髓血管病误诊原因分析[J]. *中国临床神经外科杂志*, 2017, 22(10):673-675.
- [9] 黄河,潘力,秦杰,等. 2例罕见硬脊膜外动静脉瘘的诊治及误诊原因分析[J]. *中国临床神经外科杂志*, 2019, 24(9):522-526.

(2020-06-16收稿,2020-07-25修回)