

СЛУЧАЙ УСПЕШНОГО ЛЕЧЕНИЯ ПИАЛЬНОЙ АРТЕРИО-ВЕНОЗНОЙ ФИСТУЛЫ НА ФОНЕ АДЕНОЗИН-ИНДУЦИРОВАННОЙ КАРДИОПЛЕГИИ

Кочетова А. Ф., Горощенко С. А., Рожченко Л. В., Бобинов В. В., Петров А. Е.

«РНХИ им. Проф. А. Л. Поленова» — филиал ФГБУ «НМИЦ им. В. А. Алмазова»
Минздрава России, Санкт-Петербург.

A CASE OF SUCCESSFUL TREATMENT OF PIAL ARTERIOVENOUS FISTULA WITH ADENOSINE-INDUCED CARDIOPLEGIA

Kochetova A. F., Goroshchenko S. A., Rozhchenko L. V., Bobinov V. V., Petrov A. E.

Polenov Russian Scientific Institute of Neurosurgery, the Branch of the Almazov Federal North-West Medical Research Centre,
St. Petersburg, Russia

РЕЗЮМЕ. Пиальные артерио-венозные фистулы являются редко встречающейся патологией сосудов головного мозга, представляющей собой прямое соустье между церебральными артерией и веной, расположенными в субарахноидальном пространстве без наличия промежуточного сосудистого клубка между ними. Частота встречаемости данной патологии составляет всего 1,6% всех сосудистых пороков развития. За последние 7 лет в РНХИ им. проф. А. Л. Поленова на отделении патологии сосудов головного и спинного мозга среди 864 пациентов выявлено лишь 3 пациента с пиальными артерио-венозными фистулами, диагностированными во взрослом периоде жизни. Проведен демонстрация случая одномоментного успешного выключения фистулы из кровотока.

ABSTRACT. Pial arteriovenous fistulas are a rare cerebrovascular pathology, known as a direct fistula between the cerebral artery and the vein located in the subarachnoid space without the presence of an intermediate vascular node between them. The incidence of this pathology is only 1.6% of all vascular malformations. Over the past 7 years at the Polenov Russian Scientific Institute of Neurosurgery at the Department of Vascular Pathology of the Brain, among 864 patients, only 3 patients with pial arteriovenous fistulas diagnosed in the adult period were identified. A case of one-step successful exclusion of a fistula from the bloodstream has been demonstrated.

Введение.

Работа публикуется с целью дать описание случая успешного лечения редкой цереброваскулярной патологии (пиальные артерио-венозные фистулы — АВФ), а также охарактеризовать различные способы лечения данного заболевания.

Клинический случай.

Пациентка Д., 59 лет поступила с жалобами на периодическую головную боль в левой половине головы, усиливающуюся на фоне физической нагрузки, подъемов артериального давления. В связи с появившимися жалобами в 2008 году пациентка была обследована в поликлинике по месту жительства, выполнена МРТ головного мозга, по результатам которой поставлен диагноз «Артериовенозная мальформация левого полушария головного мозга». Нейрохирургами городской больницы по месту жительства больной было предложено микрохирургическое вмешательство, от которого пациентка отказалась.

В период с 2008 по 2020 год не отмечала эпизодов эпилептических припадков, острой и нестерпимой головной боли, чувствительных и двигательных расстройств, нарушения зрения. В июне 2020 года развился гипертонический криз, на фоне которого усилилась боль в левой половине головы. Для уточнения характера патологического процесса выполнена МСКТ-ангиография сосудов головного мозга,

по результатам которой визуализируется пиальная артериовенозная фистула области левой затылочной доли, питающаяся из М4-сегмента расширенной в диаметре левой средней мозговой артерии (СМА), дренирующаяся в кортикальные вены с признаками их значимой перегрузки (рис. 1).

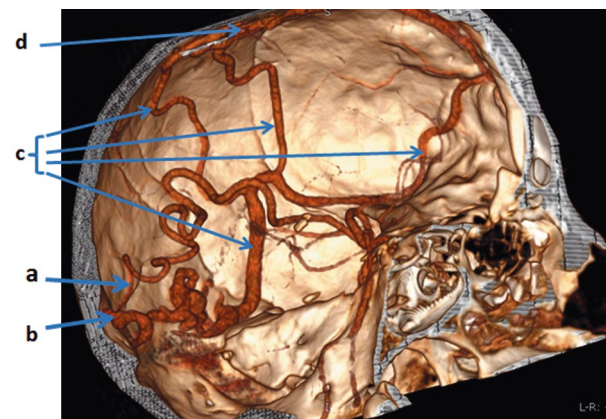


Рис. 1: Пиальная артерио-венозная фистула области левой затылочной доли (b) с афферентом из М4-сегмента расширенной в диаметре левой средней мозговой артерии (a), со сбросом в кортикальные вены с признаками венозной перегрузки (c), впадающие в верхний саггитальный синус (d).

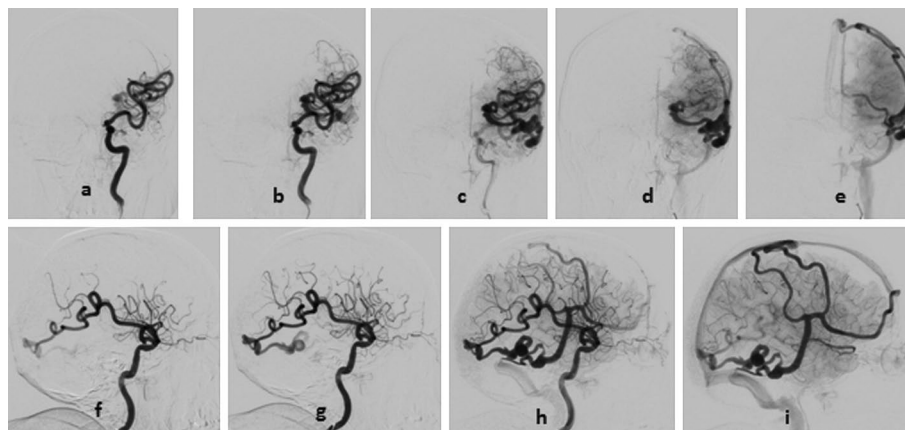


Рис. 2: Каротидная левосторонняя ангиография: контрастируется артериовенозная фистула, заполняющаяся из коркового сегмента левой средней мозговой артерии, с дренированием через варикозно расширенные корковые вены с оттоком в верхний саггитальный синус. Отмечается гипертрофия левой средней мозговой артерии с отсутствием кровотока по левой передней мозговой артерии, отсутствует задняя соединительная артерия слева. а, b, c, d, e,— прямая проекция; f, g, h, i — боковая проекция

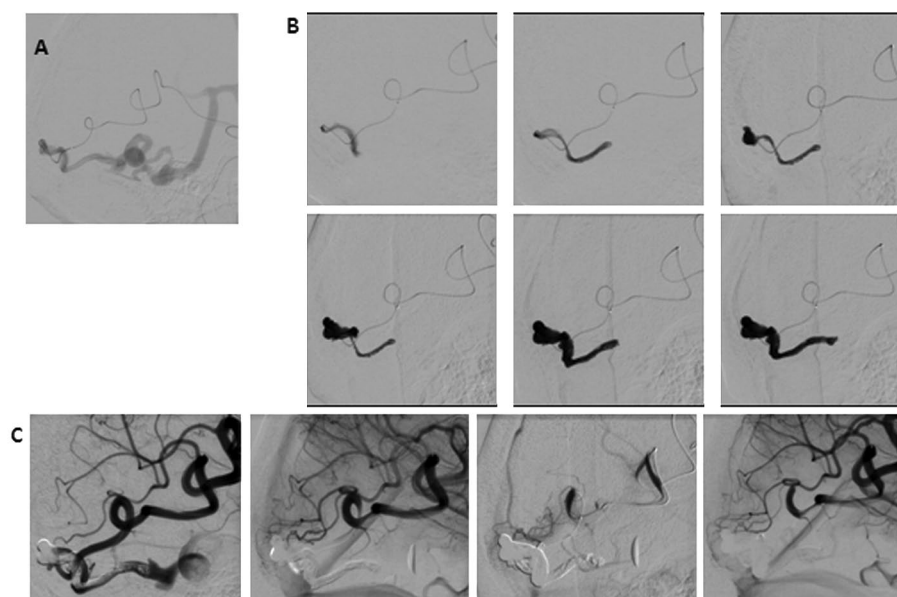


Рис. 3: а — интраоперационная микроангиография; б — эмболизация АВФ неадгезивной композицией на фоне аденозин-индуцированной кардиоплегии в течение 5 секунд (1 этап); с — результат эмболизации АВФ неадгезивной композицией на фоне аденозин-индуцированной кардиоплегии: АВФ тотально заполнена эмболизатом, наблюдается стагнация кровотока в дистальных отделах средней мозговой артерии, перестройка кровотока в системе левой СМА.

Клиническая картина при поступлении в РНХИ им проф. А.Л. Поленова представлена цефалгическим синдромом, очаговой и менингеальной симптоматики не обнаружено. Сопутствующая патология была представлена гипертонической болезнью и сахарным диабетом 2 типа, по поводу которых пациентка получала соответствующую терапию. С целью предотвращения развития внутримозгового кровоизлияния было принято решение об проведении эндоваскулярного вмешательства. При селективной церебральной ангиографии выявлена пиальная артериовенозная высокопоточковая фистула, питающаяся из М4-сегмента левой СМА и дренирующаяся в варикозно расширенные корковые вены с дальнейшим оттоком крови в верхний саггитальный синус (рис. 2).

Учитывая наличие высокоскоростной фистулы, с целью предотвращения дистальной миграции эмболизата в венозное русло принято решение о проведении эмболизации на фоне аденозин-индуцированной кардиоплегии. Микрокатетер Apollo (EV3, США) введен в афферент. На фоне двукратной аденозин-трифосфат-индуцированной кардиоплегии продолжительностью по 5 секунд введено 1,5 мл неадгезивной композиции Onyx-34 (EV3, США). На фоне восстановления ритма до брадикардии отмечалась миграция первой порции эмболизата дистально по вене, и только повторный эпизод асистолии создал условия для тотальной окклюзии фистулы и полного прекращения кровотока в ней. Далее было введено еще 1,5 мл эмболизата для полного заполнения мелких пато-

логических сосудов также ассоциированных с фистулой. На контрольной ангиографии АВФ totally выключена из кровотока (рис. 3).

По данным послеоперационной КТ признаков внутричерепного кровоизлияния нет. В течение первых послеоперационных суток пациентка находилась в нейро-вегетативной блокаде для избежания развития ишемических и геморрагических осложнений. Послеоперационный период протекал гладко, неврологически состояние пациентки оценивалось как на дооперационном уровне, на вторые послеоперационные сутки отмечалась головная боль до 4–5 баллов по ВАШ, которая впоследствии регрессировала. Пациентка выписана в компенсированном состоянии.

Обсуждение.

Среди всех церебральных шунтирующих процессов отдельный интерес вызывают пиальные артериовенозные фистулы (АВФ). Они представляют собой прямое соустье между артерией головного мозга и венозным дренажом в субарахноидальном пространстве головного мозга без наличия сосудистого клубка между ними [23]. Ранее бытовало мнение, что пиальная АВФ — это разновидность артериовенозной мальформации (АВМ), называемая фистулезной АВМ [1]. Однако, в дальнейшем произошло выделение данной патологии в самостоятельную нозологическую единицу, частота встречаемости которой составляет всего около 1,6% всех сосудистых пороков развития [2].

Вопрос этиологии по сей день остается открытым. Большинство пиальных АВМ являются врожденными. Paramasivam S. et al. (2015) описали теорию эмбрионального развития: на этапе закладки сосудов головного мозга образуются расширенные капиллярообразные шунты между артериями и венами, которые в ходе дальнейшего развития эндотелия сосудов не облитерируются и не замещаются капиллярной сетью [24]. Под влиянием генетических ошибок в ходе эмбрионального развития некоторые из таких дилатированных шунтов продолжают свое существование, заявляя о себе в первое пятилетие жизни ребенка симптомами гидроцефалии, отклонений развития, эпизодами геморрагии, судорог, головной боли или неврологического дефицита [25]. При отсутствии или слабой выраженности вышеперечисленных симптомов АВФ диагностируется в более позднем возрасте. Что касается выявленных во взрослом периоде пиальных АВФ, то описаны также травматическая или ятрогенная причины развития [24]. В описываемом случае черепно-мозговой травмы анамнестически не было выявлено, нейрохирургическим вмешательствам пациентка не подвергалась, в связи с чем в данном случае можно предполагать врожденный характер патологии.

Пиальные АВФ могут располагаться в любом отделе головного мозга, но наиболее частой является супратенториальная локализация [27]. В зависимости от локализации, размеров фистулы, количества афферентов, наличия венозных вариксов могут на-

блюдаться определенные клинические проявления, такие как внутримозговые кровоизлияния, пульсирующий шум в голове, очаговая симптоматика, в том числе эпилептические припадки, общемозговая симптоматика (цефалгия, головокружение, тошнота и рвота) [5,7–22]. Достаточно часто данная сосудистая аномалия сопровождается формированием венозных вариксов [3,4,5,6]. Их наличие повышает риск развития внутричерепного кровоизлияния, обусловленный увеличением гемодинамической перегрузки расширенной дренажной вены, истонченные стенки которой наиболее подвержены разрыву.

Тип течения АВФ зависит от скорости кровотока по соустью, количества афферентов, наличия и степени выраженности венозного рефлюкса, венозных вариксов. Эти же факторы определяют выбор метода лечения: микрохирургический, эндоваскулярный или радиохирургический [23].

Методы лечения данной сосудистой аномалии прошли длительный путь своей эволюции. В настоящее время применяются методы эндоваскулярной эмболизации фистул, микрохирургического их разобщения и комбинация этих методик [26]. По данным Yang et al. (2011) эффективность микрохирургического разобщения пиальных АВФ составила 96,8%, в то время как эффективность эндоваскулярного метода составила 86,5% [27]. Нередко отмечается рецидив АВФ после частичной эндоваскулярной эмболизации по причине невозможности катетеризации питающих артерий малого диаметра или прекращения операции при высоком риске дистальной миграции эмболизата в венозные синусы и эмболии в систему легочных артерий [28].

Несмотря на высокую эффективность микрохирургической техники, следует учитывать, что данный метод лечения более травматичен и применяется в настоящее время в случае наличия большого количества афферентов, а также после неудачной эмболизации или в дополнение к ней. Решение о тактике лечения пиальной АВФ принимается после уточнения индивидуальных особенностей ангиоархитектоники, локализации фистулы, а также на основании имеющегося опыта команды хирургов [29].

Проблема возможности тотальной эмболизации многоафферентной пиальной АВФ, дренируемой единственной веной, нашла свое решение относительно недавно. Случай первой трансвенозной эмболизации пиальной АВФ у девочки 12 месяцев сообщили Cooke D. с соавт. в 2011 году. Они описали у пациентки наличие мультиафферентной пиальной АВФ, кровоснабжаемой из расширенных задней височной и задней хороидальной ветвей задней мозговой артерии, островковыми ветвями правой средней мозговой артерии, из задней соединительной и передней хороидальной артерий. Венозный отток происходил через базальную вену Розенталя справа в варикозно расширенную вену Галена. После частичной эмболизации АВФ из нескольких афферентов отделяемыми спиралями, кровоток в фистуле резко

сократился, что привело через 3 месяца к развитию внутримозгового кровоизлияния с прорывом в желудочки. Учитывая малый диаметр питающих сосудов, отходивших из задней мозговой артерии, была применена эмболизация АВФ неадгезивной композицией Опух18, однако продолжающие функционировать мелкие питающие ветви несли риск развития повторного кровоизлияния. Было принято решение о трансвенозной эмболизации фистулы, к чему подталкивало ее анатомическое строение (много афферентов и единственная дренирующая вена). Выполнена трансвенозная эмболизация фистулы отделяемыми спиралями с хорошим эффектом: на контрольной церебральной ангиографии через 6 месяцев нет признаков функционирующей пиальной АВФ [30].

Несмотря на выраженные успехи в развитии внутрисосудистой эмболизации, продолжал стоять вопрос, каким наиболее безопасным образом возможно эмболизировать фистулу при высоком потоке в ней. Аденозин-индуцированная кардиоплегия, помогающая упростить и в большинстве случаев полностью решить данную проблему, начала применяться в эндоваскулярной хирургии относительно недавно. Известно, что аденозотрисульфат — это пуриновый нуклеозид, содержащийся в каждой клетке любого организма и имеющий период полураспада не более 10 секунд. Считается, что аденозин является важнейшим модулятором церебрального кровотока и обладает функцией нейропротекции [31, 32]. Как фармпрепарат аденозин нашел свое применение в лечении суправентрикулярных тахикардий, замедляя и даже блокируя проведение по атриовентрикулярному узлу. В данных целях он используется в дозе от 6 до 12 мг. При ее превышении аденозин может вызвать синусарест, провоцируя временную асистолию. Данный эффект был взят в основу использования аденозина для временной контролируемой кардиоплегии. Несомненно, процедура имеет и свои нежелательные эффекты, в том числе риск бронхоспазма и продолжительной дисфункции синусового узла, что возникает исключительно в редких случаях. К тому же, имеются сведения о минимальном влиянии высоких доз аденозина на церебральную гемодинамику, а именно незначительном увеличении перфузии головного мозга за счет транзиторной вазодилатации и увеличения церебрального кровотока [31].

Первые сведения о применении аденозина в эндоваскулярной хирургии церебральных АВМ принад-

лежат Pile-Spellman et al. (1999) [32]. Он применил данный метод при эмболизации высокопоточковой АВМ при помощи n-BCA (n-бутилцианакрилата). После нескольких тестовых введений аденозина (12 мг, 30 мг, 48 мг и 64 мг) было решено использовать дозу 64 мг для достижения асистолии сроком до 15 секунд с восстановлением изначального уровня артериального давления в течение минуты. За 15-секундный период асистолии медленным введением N-BCA через микрокатетер удалось полностью эмболизировать часть АВМ, заполняемой из катетеризированного афферента задней мозговой артерии вплоть до венозного компартмента. Осложнений после данной манипуляции не наблюдалось.

Метод аденозин-индуцированной кардиоплегии начал широко применяться в лечении других высокопоточковых церебральных артерио-венозных шунтов, а именно — АВМ вены Галена [34], а также пиальные и дуральные АВФ [35]. Большой опыт использования аденозин-индуцированной кардиоплегии в эндоваскулярном лечении цереброваскулярной артериовенозной патологии был накоплен и затем опубликован в статье отделения хирургии сосудов головного мозга РНХИ им. проф. А. Л. Поленова, обобщившей опыт лечения высокопоточковых церебральных фистул [36].

Таким образом, у нашей пациентки с пиальной АВФ, имеющей единственный афферент из М4-сегмента левой СМА, дренирующийся корковыми венами в верхний саггитальный синус и имеющей высокую скорость потока, была успешно применена эндоваскулярная методика эмболизации АВФ неадгезивной композицией на фоне аденозин-индуцированной кардиоплегии. В результате оперативного вмешательства удалось добиться тотального исключения пиальной АВФ из кровотока без развития неврологических осложнений.

Заключение.

Пиальные церебральные АВФ являются патологией, диагностика которой может быть затруднена вследствие редкой их встречаемости и связанной с этим низкой врачебной настороженности. Появление современных инструментов для эндоваскулярной хирургии, а также слаженная работа всех членов операционной бригады позволяют успешно оперировать эту сосудистую патологию с хорошими ангиографическим и функциональным исходами.

Авторы сообщают об отсутствии конфликта интересов и об отсутствии финансирования.

Список литературы

1. Yang, W.-H., LU, M.-S., Cheng, Y.-K., & Wang, T.-C. Pial arteriovenous fistula: a review of literature. *British Journal of Neurosurgery*. 2011;25(5):580–585.
2. Panigrahi S, Mishra SS, Das S, Parida DK. Intracerebral pial arteriovenous fistula with large venous varix: A rare case report. *Surg Neurol Int* 2013;4:22.
3. Almeida GM, Shibata MK: Hemispheric arteriovenous fistulae with giant venous dilation. *Childs Nerv Syst* 6:216–219, 1990
4. CarrilloR, CarreiraLM, PradaJ, RosasC, EgasG: Giantaneurysm arising from a single arteriovenous fistula in a child. *J Neurosurg* 60:1085–1088, 1984.
5. Barnwell SL, Ciricillo SF, Halbach VV, Edwards MSB, Cogen PH:

- Intracerebral arteriovenous fistulas associated with intraparenchymal varix in childhood: Case reports. *Neurosurgery* 26:122–125, 1990.
6. Giller CA, Batjer HH, Purdy P, Walker B, Matthews D: Interdisciplinary evaluation of cerebral hemodynamics in the treatment of arteriovenous fistulae associated with giant varices. *Neurosurgery* 35:778–784, 1994.
 7. Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB, Hardin CW, Dowd CF, Barnwell SL: Transarterial occlusion of solitary intracerebral arteriovenous fistulas. *AJNR Am J Neuroradiol* 10:747–752, 1989.
 8. Halliday AL, Ogilvy CS, Crowell RM: Intracranial vertebral arteriovenous fistula: Case report. *J Neurosurg* 79:589–591, 1993.
 9. Kikuchi K, Kowada M, Sasajima H: Vascular malformations of the brain in hereditary hemorrhagic telangiectasia (Rendu-Osler-Weber disease). *Surg Neurol* 41:374–380, 1994.
 10. Lownie SP, Duckwiler GR, Fox AJ, Drake CG: Endovascular therapy of nongalenic cerebral arteriovenous fistulas, in Viñuela F, Halbach VV, Dion JE (eds): *Interventional Neuroradiology: Endovascular Therapy of the Central Nervous System*. New York, Raven Press, 1992, pp 87–106.
 11. Tomlinson FH, Rufenacht DA, Sundt TM Jr, Nichols DA, Fode NC: Arteriovenous fistulas of the brain and the spinal cord. *J Neurosurg* 79:16–27, 1993.
 12. Almeida GM, Shibata MK: Hemispheric arteriovenous fistulae with giant venous dilation. *Childs Nerv Syst* 6:216–219, 1990.
 13. Viñuela F, Drake CG, Fox AJ, Pelz DM: Giant intracranial varices secondary to high-flow arteriovenous fistulae. *J Neurosurg* 66:198–203, 1987.
 14. Aoki N, Sakai T, Oikawa A: Intracranial arteriovenous fistula manifesting as progressive neurologic deterioration in an infant: Case report. *Neurosurgery* 28:619–623, 1991.
 15. Beltramello A: Endovascular treatment of cerebrovascular pathology, in Raimondi AJ, Choux M, DiRocco C (eds): *Cerebrovascular Diseases in Children*. New York, Springer-Verlag, 1991, pp 133–158.
 16. Coubes P, Humbertclaude V, Rodesch G, Lasjaunias P, Echenne B, Frerebeau P: Total endovascular occlusion of a giant direct arteriovenous fistula in the posterior fossa in a case of Rendu-Osler-Weber disease. *Childs Nerv Syst* 12:785–788, 1996.
 17. Smith MD, Russell EJ, Levy R, Crowell RM: Transcatheter obliteration of a cerebellar arteriovenous fistula with platinum coils. *AJNR Am J Neuroradiol* 11:1199–1202, 1990.
 18. Bendok BR, Getch CC, Frederiksen J, Batjer HH: Resection of a large arteriovenous fistula of the brain using low-flow deep hypothermic cardiopulmonary bypass: Technical case report. *Neurosurgery* 44:888–891, 1999.
 19. Drake CG: Cerebral arteriovenous malformations: Considerations for and experience with surgical treatment in 166 cases. *Clin Neurosurg* 26:145–208, 1979.
 20. Talamonti G, Versari PP, D'Aliberti G, Villa F, Fontana RA, Collice M: Complex arteriovenous fistula of the brain in an infant: Case report. *J Neurosurg Sci* 41:337–341, 1997.
 21. Morimoto T, Yamada T, Hashimoto H, Tokunaga H, Tsunoda S, Sakaki T: Direct approach to intracranial vertebral arteriovenous fistula: Case report. *Acta Neurochir (Wien)* 137:98–101, 1995.
 22. Hermier M, Turjman F, Bozio A, Duquesnel J, Lapras C: Endovascular treatment of an infantile nongalenic cerebral arteriovenous fistula with cyanoacrylate. *Childs Nerv Syst* 11:494–498, 1995.
 23. Яковлев С. Б. Артерио-венозные фистулы головы и шеи. Клиника, ангиоархитектоника, эндоваскулярное лечение. // Дисс. канд. — М., 2008.
 24. Paramasivam, S., Toma, N., Niimi, Y., & Berenstein, A. Development, clinical presentation and endovascular management of congenital intracranial pial arteriovenous fistulas. *Journal of NeuroInterventional Surgery*. 2012;5(3):184–190. doi:10.1136/neurintsurg-2011-01024.
 25. 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. *Acta Neurochir (Wien)* 2005;147:17e31.
 26. Kalra, N., Tong, L., McCullagh, H., Goddard, T., & Tyagi, A. Surgical disconnection of a residual paediatric pial arterio-venous fistula following partial embolisation: A case study. *World Neurosurg.* (2020);138:227–230.
 27. Yang WH, Lu MS, Cheng YK, Wang TC. Pial arteriovenous fistula: a review of the literature. *Br J Neurosurg.* (2011);25:580–585
 28. Feng L, Liu Y, Lv C, Su C. Pial arteriovenous fistulas: two pediatric cases and a literature review. *Int J Clin Exp Med.* (2016);9:7855–7862.
 29. Martins WCdS, Albuquerque LAFd, Filho CBAdS, Dellaretti M, Sousa AAd. Surgical treatment of the intracranial pial arteriovenous fistula. *Surg Neurol Int.* 2015;5:102.
 30. Cooke D, Tatum J, Farid H, et al. Transvenous embolization of a pediatric pial arteriovenous fistula. *Journal of NeuroInterventional Surgery* (2012);4: e14.
 31. Joshi S, Young WL, Pile-Spellman J, Duong DH, Vang MC, Hacein-Bey L, Lee HT, Ostapkovich N: The feasibility of intracarotid adenosine for the manipulation of human cerebrovascular resistance. *Anesth Analg* 87:1291–1298, 1998
 32. Pile-Spellman J, Young WL, Joshi S, Duong DH, Vang MC, Hartmann A, Kahn RA, Rubin DA, Prestigiacomo CJ, Ostapkovich ND. Adenosine-induced cardiac pause for endovascular embolization of cerebral arteriovenous malformations: Technical case report. *Neurosurgery.* 1999;44:881–886.
 33. Robinson, M. C., Thielmeier, K. A., & Hill, B. B. Transient ventricular asystole using adenosine during minimally invasive and open sternotomy coronary artery bypass grafting. *The Annals of Thoracic Surgery.* 1997;63(6): S30–S34.
 34. Tsimpas A, Chalouhi N, Halevy JD, Tjoumakaris S, Gonzalez LF, Monteith SJ, Dumont AS, Rosenwasser R, Jabbour P. The use of adenosine in the treatment of a high-flow vein of Galen malformation in an adult. *Journal of Clinical Neuroscience.* 2014;21(7):1259–1261.
 35. Al-Mousa A, Bose G, Hunt K, Toma AK. Adenosine assisted neurovascular surgery: initial case series and review of literature. *Neurosurgical Review.* 2019;42(1):15–22.
 36. Горощенко С. А., Петров А. Е., Рожченко Л. В., Самочерных К. А. Опыт эндоваскулярной эмболизации высокопоточных артериовенозных фистул в структуре церебральных артериовенозных мальформаций неадгезивными эмболизатами на фоне аденозин-индуцированной кардиоopleгии. *Журнал «Вопросы нейрохирургии» имени Н. Н. Бурденко.* 2020;84(3):21–2