

<https://doi.org/10.29001/2073-8552-2022-37-2-124-128>
УДК 616.13/.14-007.253-089-07-053.1-053.31

Перинатальное томографическое наблюдение случая крупной врожденной пиальной артериовенозной фистулы до и после оперативного лечения

Н.Р. Обединская¹, В.В. Берестов^{2, 3}, К.Ю. Орлов^{2, 3}, А.М. Горностаева¹,
А.М. Коростышевская¹

¹ Международный томографический центр Сибирского отделения Российской академии наук, 630090, Российская Федерация, Новосибирск, ул. Институтская, 3А

² Федеральный центр мозга и нейротехнологий, 117513, Российская Федерация, Москва, ул. Островитянова, 1, стр. 10

³ Национальный медицинский исследовательский центр имени академика Е.Н. Мешалкина Министерства здравоохранения Российской Федерации, 630055, Российская Федерация, Новосибирск, Речкуновская ул., 15

Аннотация

Пиальные артериовенозные фистулы (ПАВФ) – это крайне редкий тип интракраниальных сосудистых врожденных аномалий развития. Представленный клинический случай является уникальным примером внутриутробной диагностики ПАВФ с помощью магнитно-резонансной томографии (МРТ) плода на 30-й нед. развития, позволившей успешно провести оперативное лечение в раннем неонатальном периоде. В работе продемонстрированы возможности МРТ плода в диагностике ПАВФ и сопутствующей патологии головного мозга, полностью согласующиеся с результатами постнатальной церебральной ангиографии. На основании данных нейровизуализации, на 2-й день жизни ребенка успешно выполнена эндоваскулярная операция в объеме и эмболизации фистул отделяемыми микроспиралями. Констатирован хороший неврологический результат операции. С учетом известного неблагоприятного исхода ПАВФ, в случае несвоевременно произведенного оперативного лечения, данное наблюдение демонстрирует необходимость применения МРТ плода для пренатальной дифференциальной диагностики сосудистых мальформаций с целью снижения риска возможных осложнений и смертности в раннем неонатальном периоде.

Ключевые слова:	пиальная артериовенозная фистула, магнитно-резонансная томография плода, пренатальная диагностика.
Конфликт интересов:	авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.
Прозрачность финансовой деятельности:	никто из авторов не имеет финансовой заинтересованности в представленных материалах или методах.
Соответствие принципам этики:	информированное согласие получено от каждого законного представителя пациента. Исследование одобрено этическим комитетом Международного томографического центра СО РАН (протокол № 1 от 10.01.2022).
Для цитирования:	Обединская Н.Р., Берестов В.В., Орлов К.Ю., Горностаева А.М., Коростышевская А.М. Перинатальное томографическое наблюдение случая крупной врожденной пиальной артериовенозной фистулы до и после оперативного лечения. <i>Сибирский журнал клинической и экспериментальной медицины</i> . 2022;37(2):124–128. https://doi.org/10.29001/2073-8552-2022-37-2-124-128 .

Perinatal observation of large congenital pial arteriovenous fistula before and after surgery: A case report

Natalya R. Obedinskaya¹, Vadim V. Berestov^{2, 3}, Kirill Yu. Orlov^{2, 3},
Alyona M. Gornostaeva¹, Alexandra M. Korostyshevskaya¹

¹ International Tomography Center, Siberian Branch of the Russian Academy of Sciences,
3A, Institutskaya str., Novosibirsk, 630090, Russian Federation

² Federal Center of Brain and Neurotechnologies,
1, Ostrovityanova str., p. 10, Moscow, 117513, Russian Federation

³ Meshalkin National Medical Research Center,
15, Rechkunovskaya str., Novosibirsk, 630055, Russian Federation

Abstract

Pial arteriovenous fistula (PAVF) is an extremely rare type of intracranial vascular congenital anomalies. The presented clinical case is a unique example of intrauterine diagnosis of PAVF using fetal MRI at 30 weeks of gestation, which allowed successful surgical treatment in the early neonatal period. The case demonstrates the capabilities of fetal MRI in the diagnosis of PAVF and estimation of accompanying brain changes, which are fully consistent with the results of postnatal cerebral angiography. Based on neuroimaging data, endovascular embolization of the fistula with detachable microcoils was successfully performed on the 2nd day of the child's life. A good neurologic outcome of the surgery was stated. Taking into account the known unfavorable outcome of PAVF in the case of untimely surgical treatment, this observation demonstrates the need to use fetal MRI for prenatal differential diagnosis of vascular malformations in order to reduce the risk of possible complications and mortality in the early neonatal period.

Keywords: pial arteriovenous fistula, fetal MRI, prenatal diagnosis.

Conflict of interest: the authors do not declare a conflict of interest.

Financial disclosure: no author has a financial or property interest in any material or method mentioned.

Adherence to ethical standards: informed consent was obtained from each legal representative of the patient. The study was approved by the Ethics Committee of International Tomography Center, Siberian Branch of the Russian Academy of Sciences (protocol No. 1 from 01.10.2022).

For citation: Obedinskaya N.R., Berestov V.V., Orlov K.Yu., Gornostaeva A.M., Korostyshevskaya A.M. Perinatal observation of large congenital pial arteriovenous fistula before and after surgery: A case report. *The Siberian Journal of Clinical and Experimental Medicine*. 2022;37(2):124–128. <https://doi.org/10.29001/2073-8552-2022-37-2-124-128>.

Введение

Пиальные артериовенозные фистулы (ПАВФ) – это крайне редкий тип интракраниальных сосудистых врожденных аномалий, составляющих до 7,3% всех сосудистых мальформаций в детской популяции. [1, 2]. ПАВФ предполагает наличие одной или нескольких артериальных ветвей с прямым дренажом в единственную вену, обычно варикозно расширенную.

Отличием ПАВФ от артерио-венозных мальформаций (АВМ) является отсутствие патологического сосудистого «клубка». В свою очередь, отличительным признаком ПАВФ и дуральной артериовенозной фистулы считается наличие афферентов из пиальных или кортикальных артерий и их локализация вне твердой мозговой оболочки. [3]. Диагностические трудности возникают в дифференциальной диагностике ПАВФ от аневризмы вены Галены, так как в нее происходит зачастую артерио-венозный дренаж, и она, соответственно, может быть значительно расширена [4].

По данным различных авторов, без хирургического вмешательства подобные мальформации имеют неблагоприятный исход в 63% случаев. Наиболее частыми осложнениями ПАВФ является развитие застойной сердечной недостаточности, легочной гипертензии, эпилептических приступов и геморрагических инсультов [5].

Представленный ниже клинический пример демонстрирует возможности пренатальной МРТ в диагностике ПАВФ, необходимой для своевременного определения дальнейшей тактики постнатального ведения и определения прогноза.

Предоперационная диагностика

Беременная 26 лет, без отягощенного акушерско-гинекологического анамнеза, первородящая. Первые косвенные признаки цереброваскулярной патологии плода были выявлены на втором ультразвуковом (УЗ) скрининге на 20-й нед. беременности. На третьем УЗ скрининге в 29 нед. беременности подтвердилось наличие крупного

интракраниального сосудистого образования, подозрительного на аневризму вены Галена. На 30-й нед. гестации выполнено МРТ плода (3T Ingenia, Philips Healthcare, Best, Netherlands) с толщиной среза 2–3 мм; протокол включал в себя T2-BFFE в трех ортогональных плоскостях, T1-FGE, EPI и DWI.

По данным фетального МРТ выявлены признаки прямого сообщения между базилярной артерией и глубокой

веней мозга с варикозным ее расширением до $20 \times 28 \times 26$ мм (фронтальный/сагиттальный/ вертикальный) и дальнейшим сбросом в вену Галена и прямой синус с их патологическим расширением. Также отмечалась деформация и компримирование стволовых структур варикозно расширенной веной. Признаков ишемического, геморрагического поражения, по данным DWI и EPI, энцефаломалии и гидроцефалии не выявлено (рис. 1В, Г).

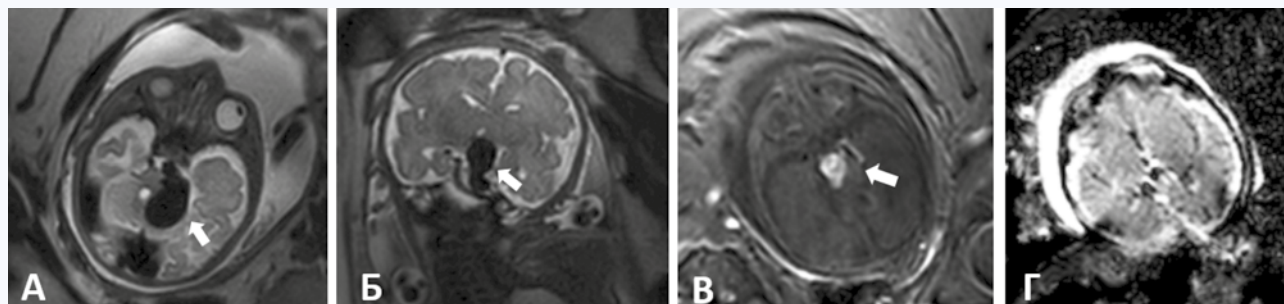


Рис. 1. МРТ плода, 30-я нед. гестационного развития. T2-BFFE изображения головного мозга плода в аксиальной (А) и фронтальной (Б) плоскостях. T1-ВИ (В) и ADC-карта (Г) головного мозга плода в аксиальной плоскости. Белой стрелкой отмечена варикозно расширенная дренирующая вена
Fig. 1. Fetal MRI, 30 weeks of gestation. T2-BFFE images of the fetal brain in the axial (A) and frontal (B) planes. Brain T1-WI (V) and ADC-map (Г) in axial plane. The white arrow indicates the varicose draining vein

Плановое кесарево сечение выполнено на сроке гестации 38 нед. и 3 дня. Родоразрешение прошло без осложнений, родился мальчик, вес – 3010 г, рост – 51 см, 7/8 баллов по шкале Апгар.

Сразу после рождения ребенок проконсультирован нейрохирургом НМИЦ им. акад. Е.Н. Мешалкина. Учитывая выраженный артериовенозный сброс через фистулу, высокую степень легочной гипертензии, высокий риск кровоизлияния определены показания к экстренному эндоваскулярному лечению. По данным ЭхоКГ, у новорожденного выявлены врожденные пороки сердца: мышечный дефект межжелудочковой перегородки в стадии спонтанного закрытия, дефект межпредсердной перегородки вторичного типа диаметром 5 мм, открытый

артериальный проток в стадии спонтанного закрытия, - которые не были рассмотрены кардиохирургом как противопоказания к оперативному лечению.

Оперативное вмешательство

По данным церебральной ангиографии, выполненной перед эмболизирующей коррекцией порока, выявлено прямое сообщение базилярной артерии и патологический артериовенозный сброс из обоих каротидных бассейнов через расширенные задние соединительные артерии и P1 сегменты обеих задне-мозговых артерий в глубокую вену мозга с варикозным ее изменением, дальнейший сброс в вену Галена и прямой синус с расширением всех венозных путей оттока (рис. 2А).

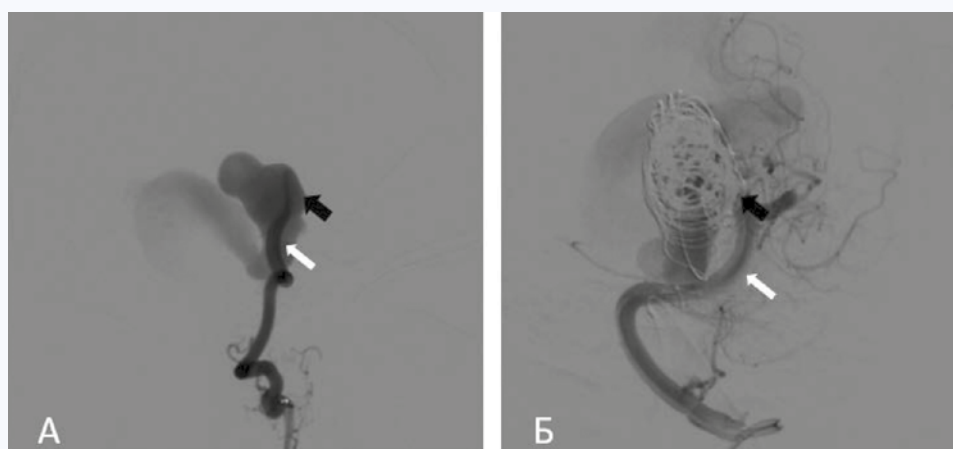


Рис. 2. Церебральные ангиограммы в прямой проекции до (А) и после эмболизации (Б) ПАВФ микроспиралями. Белой стрелкой отмечена базилярная артерия, черной стрелкой отмечена фистула с глубокой веной мозга
Fig. 2. Cerebral angiograms in direct projection before (A) and after embolization (B) of PAVF with microcoils. The white arrow indicates the basilar artery; the black arrow indicates fistula

На следующий день после рождения ребенку выполнено субтотальная эмболизация артериовенозной фистулы между основной артерией и глубокой веной мозга микроспиральями Penumbra. В результате операции достигнуто субтотальное тромбирование фистулы со значительным снижением артериовенозного сброса и улучшением контрастирования церебральных сосудов (рис. 2В).

Интраоперационно проводился доплерографический контроль церебральной гемодинамики через большой родничок. Перед эмболизацией в фистуле определяется турбулентный кровоток со скоростью 110 см/с. После эмболизации было отмечено значительное снижение скорости кровотока в фистуле: с максимальной скоростью 27 см/с.

Операция прошла без технических сложностей, по данным плоскодетекторной компьютерной томографии (XperCT, Philips, Netherlands), выполненной сразу после операции, признаков интракраниального кровоизлияния выявлено не было.

Послеоперационный статус

В послеоперационном периоде у ребенка был зафиксирован птоз слева, расходящееся косоглазие вследствие центрального пареза левого глазодвигательного нерва. Наиболее вероятной причиной послеоперационного неврологического дефицита явилось сдавление ствола головного мозга тромбирующейся глубокой веной мозга. Возможные церебральные осложнения исключены, по данным мультиспиральной компьютерной томографии (МСКТ) головного мозга на 320-срезовом томографе (Aquilion One, Toshiba Medical Systems, Japan), выполненной через 4 дня после оперативного лечения (рис. 3). Ребенок выписан из отделения на 19-е сут после операции в удовлетворительном состоянии с сохраняющимися глазодвигательными нарушениями под наблюдением невролога и педиатра по месту жительства.

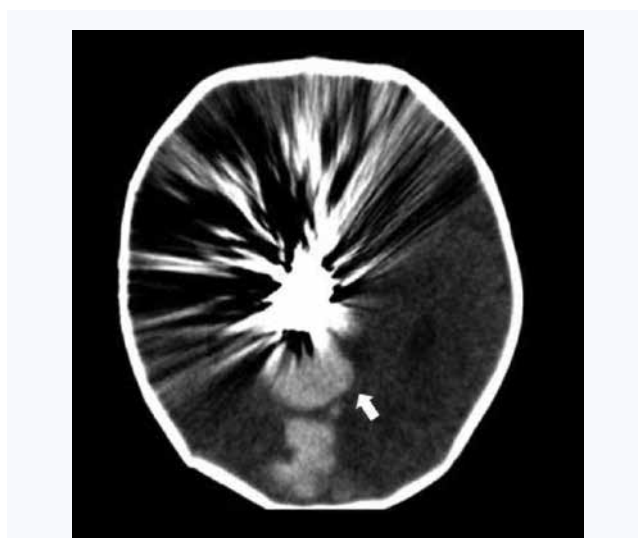


Рис. 3. Мультиспиральная компьютерная томография головного мозга, выполненная через 4 дня после оперативного вмешательства. Стрелкой обозначена тромбирующаяся дренирующая вена
Fig. 3. Brain multispiral computed tomography, performed four days after surgery. The arrow indicates a thrombosed draining vein

Назначена повторная госпитализация в нейрохирургическое отделение НМИЦ им. акад. Е.Н. Мешалкина через 6 мес. для проведения этапного оперативного лечения.

Заключение

МРТ плода со всем спектром импульсных последовательностей должна являться методом выбора для дифференциальной диагностики и уточнения степени выраженности интракраниальных сосудистых мальформаций, исходного состояния мозговых структур, определяющих тактику и успешный исход оперативного лечения.

Литература / References

1. Yu J., Shi L., Lv X., Wu Z., Yang H. Intracranial non-galenic pial arteriovenous fistula: A review of the literature. *Interv. Neuroradiol.* 2016;22(5):557–568. DOI: 10.1177/1591019916653934.
2. Hetts S.W., Keenan K., Fullerton H.J., Young W.L., English J.D., Gupta N. et al. Pediatric intracranial nongalenic pial arteriovenous fistulas: Clinical features, angioarchitecture and outcomes. *Am. J. Neuroradiol.* 2012;33(9):1710–1719. DOI: 10.3174/ajnr. A3194.
3. Weon Y.C., Yoshida Y., Sachet M., Mahadevan J., Alvarez H., Rodesch G. 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(1):17–31. DOI: 10.1007/s00701-004-0341-1.
4. Garel C., Azariant M., Lasjaunias P., Luton D. Pial arteriovenous fistulas: Dilemmas in prenatal diagnosis, counseling and postnatal treatment. Report of three cases. *Ultrasound Obstet. Gynecol.* 2005;26(3):293–229. DOI: 10.1002/uog.1957.
5. Nelson P.K., Nimi Y., Lasjaunias P., Berenstein A. Endovascular embolization of congenital intracranial pial arteriovenous fistulas. *Neuroimaging Clin. N. Am.* 1992;2:309–317.

Благодарности

Мы благодарим Министерство науки и высшего образования РФ (AAAA-A21-121012290041-9).

Информация о вкладе авторов

Обединская Н.Р., Коростышевская А.М. проводили независимую интерпретацию фетального МРТ.

Обединская Н.Р. анализировала и интерпретировала данные постнатальных изображений и результаты оперативного вмешательства, принимала участие в написании статьи, подборе иллюстративного материала.

Берестов В.В. выполнил хирургическое вмешательство и проводил послеоперационное наблюдение, предоставил клиническую информацию.

Information on author contributions

Obedinskaya N.R. and Korostyshevskaya A.M. performed an independent interpretation of fetal MRI.

Obedinskaya N.R. analyzed the data, interpreted the postnatal images and the results of surgery, and made a substantial contribution to the writing of manuscript and selection of illustrative material.

Berestov V.V. performed the surgery and postoperative follow-up and provided clinical information.

Orlov K.Yu. performed the surgery and postoperative follow-up and provided clinical information.

Орлов К.Ю. выполнил хирургическое вмешательство и проводил послеоперационное наблюдение, предоставил клиническую информацию.

Горностаева А.М. внесла вклад в оформление иллюстраций, составление списка литературы, подготовила статью к публикации согласно требованиям журнала.

Коростышевская А.М. предложила концепцию статьи, выполняла общее руководство, окончательную корректировку и доработку текста.

Все авторы дали окончательное согласие на подачу рукописи и согласились нести ответственность за все аспекты работы, ручаясь за их точность и безупречность.

Gornostaeva A.M. contributed to design of illustrations, compiled a list of references, and prepared the manuscript for publication according to the requirements of the journal.

Korostyshevskaya A.M. proposed the concept of the article, managed writing processes, and finalized the original text of the manuscript.

All authors gave their final consent to the submission of the manuscript and agreed to be responsible for all aspects of the work vouching for their accuracy and impeccability.

Информация об авторах

Обединская Наталья Ростиславовна, врач-рентгенолог, лаборатория МРТ технологий, Международный томографический центр Сибирского отделения Российской академии наук. ORCID 0000-0001-8279-8738.

E-mail: n.obedinskaya@tomo.nsc.ru.

Берестов Вадим Вячеславович, врач-нейрохирург, Федеральный центр мозга и нейротехнологий; врач-нейрохирург, научно-исследовательский отдел ангионеврологии и нейрохирургии, Национальный медицинский исследовательский центр имени академика Е.Н. Мешалкина Министерства здравоохранения Российской Федерации. ORCID 0000-0003-2491-319X.

E-mail: vyberestov@gmail.com.

Орлов Кирилл Юрьевич, канд. мед. наук, руководитель Научно-исследовательского центра эндоваскулярной нейрохирургии, Федеральный центр мозга и нейротехнологий; врач-нейрохирург, научно-исследовательский отдел ангионеврологии и нейрохирургии, Национальный медицинский исследовательский центр имени академика Е.Н. Мешалкина Министерства здравоохранения Российской Федерации. ORCID 0000-0002-4832-6689.

E-mail: orlov72@mail.ru.

Горностаева Алена Марковна, младший научный сотрудник, лаборатория МРТ технологий, Международный томографический центр Сибирского отделения Российской академии наук. ORCID 0000-0001-9384-1500.

E-mail: am.popkova@yandex.ru.

Коростышевская Александра Михайловна, д-р мед. наук, ведущий научный сотрудник, лаборатория МРТ технологий, заведующий диагностическим отделением, Международный томографический центр Сибирского отделения Российской академии наук. ORCID 0000-0002-0095-8994.

E-mail: koro@tomo.nsc.ru.



Горностаева Алена Марковна, e-mail: am.popkova@yandex.ru.

Поступила 05.02.2022

Information about the authors

Natalya R. Obedinskaya, Radiologist, Laboratory of MRI Technologies, International Tomography Center, Siberian Branch of the Russian Academy of Sciences. ORCID 0000-0001-8279-8738.

E-mail: n.obedinskaya@tomo.nsc.ru.

Vadim V. Berestov, Neurosurgeon, Federal Center of Brain and Neurotechnologies; Neurosurgeon, Research Department of Angioneurology and Neurosurgery, Meshalkin National Medical Research Center. ORCID 0000-0003-2491-319X.

E-mail: vyberestov@gmail.com.

Kirill Yu. Orlov, Cand. Sci. (Med.), Head of the Research Center for Endovascular Neurosurgery, Federal Center of Brain and Neurotechnologies; Neurosurgeon, Research Department of Angioneurology and Neurosurgery, Meshalkin National Medical Research Center. ORCID: 0000-0002-4832-6689.

E-mail: orlov72@mail.ru.

Alyona M. Gornostaeva, Junior Research Scientist, Laboratory of MRI Technologies, International Tomography Center, Siberian Branch of the Russian Academy of Sciences. ORCID 0000-0001-9384-1500.

E-mail: am.popkova@yandex.ru.

Alexandra M. Korostyshevskaya, Dr. Sci. (Med.), Leading Research Scientist, Laboratory of MRI Technologies, Head of the Department of Medical Diagnostics, International Tomography Center, Siberian Branch of the Russian Academy of Sciences. ORCID 0000-0002-0095-8994.

E-mail: koro@tomo.nsc.ru.



Alyona M. Gornostaeva, e-mail: am.popkova@yandex.ru.

Received February 05, 2022