

· 临床研究 Clinical research ·

复合手术治疗复杂硬脑膜动静脉瘘近中期效果

邓 桥, 冯文峰

【摘要】目的 探讨复合手术治疗复杂硬脑膜动静脉瘘(DAVF)的近中期临床效果。方法 回顾性分析 2017 年 1 月至 2018 年 12 月南方医科大学南方医院收治的 20 例 DAVF 患者临床资料,其中符合纳入标准的 8 例接受复合手术治疗。术后定期随访复查头颅 CT/MRI 和 DSA 评估瘘口闭合情况,评估神经功能、改良 Rankin 量表(mRS)评分变化。结果 术中即刻造影显示瘘口完全闭塞 7 例(7/8),近完全闭塞 1 例(1/8)。术后 2 周 1 例因突发肺栓塞死亡。随访 3~24 个月,复查 CT/MRI 和 DSA 显示 7 例恢复良好,均无新发神经功能障碍,既往严重临床症状得到改善,mRS 评分下降至 2~3 分。结论 复合手术治疗静脉窦闭塞或多“共同通道”的复杂 DAVF,可提供明确的治疗入路,通过一次全面手术使瘘口彻底永久性闭合,术后近中期临床预后较好。

【关键词】复合手术;硬脑膜动静脉瘘;共同通道;临床疗效

中图分类号:R743.4 文献标志码:B 文章编号:1008-794X(2020)-04-0385-04

The short-to-mid-term curative effect of hybrid surgery for complex dural arteriovenous fistula DENG Qiao, FENG Wenfeng. Department of Neurosurgery, Nanfang Hospital of Southern Medical University, Guangzhou, Guangdong Province 510515, China

Corresponding author: FENG Wenfeng, E-mail: 905528697@qq.com

【Abstract】Objective To explore the short-to-mid-term curative effect of hybrid surgery for complex dural arteriovenous fistula (DAVF). Methods The clinical data of 20 patients with DAVF, who were admitted to Southern Hospital of Southern Medical University of China during the period from January 2017 to December 2018, were retrospective analyzed. Among the 20 patients, 8 patients who met the inclusion criteria received hybrid surgery. After treatment, the patients were periodically followed up, reexaminations of cerebral CT/MRI and DSA were performed to assess the closure status of fistula, the neurological functions were evaluated, and the changes in Rankin scale (mRS) scores were recorded. Results Intraoperative instant angiography showed that complete occlusion of fistula was achieved in 7 patients (7/8) and subtotal occlusion of fistula was achieved in one patient (1/8). Two weeks after treatment, one patient died due to sudden pulmonary embolism. The patients were followed up for 3-24 months, CT/MRI and DSA examination revealed that satisfactory recovery was obtained in 7 patients and no newly-developed neurological dysfunction was observed. Conclusion For the treatment of complex DAVF associated with venous sinus occlusion or multiple “common channels”, hybrid surgery can provide a clear therapeutic approach, and through a single comprehensive surgery a complete and permanent occlusion of the fistula can be achieved with satisfactory short-to-mid-term effect. (J Intervent Radiol, 2020, 29: 385-388)

【Key words】hybrid surgery; dural arteriovenous fistula; common channel; clinical efficacy

硬脑膜动静脉瘘(dural arteriovenous fistula, DAVF)是一类临床少见的脑血管畸形^[1],其特点为硬脑膜动脉与静脉窦或皮质静脉间血液异常沟通,硬脑膜引流静脉逐步动脉化引起皮层静脉在高压力

下出现逆行引流,进一步促成皮层静脉曲张或静脉瘤形成,最终破裂导致致命性颅内出血或缺血等严重事件。若伴有引流静脉窦狭窄或闭塞,多分支颅内供血管,多个瘘口和显著皮层静脉逆流,则定

义为复杂 DAVF。其发病率低,约占颅内血管畸形中 10%^[2],少部分为先天性,部分继发于颅内静脉窦血栓形成、颅脑手术、创伤及自身免疫性血管炎等。目前关于复合手术治疗复杂 DAVF 临床研究较少,本研究通过分析复合手术治疗此类疾病的近中期临床效果,初步探讨其安全性和有效性。

1 材料与方法

1.1 临床资料

收集 2017 年 1 月至 2018 年 12 月南方医科大学南方医院收治的 20 例 DAVF 患者临床资料,将符合标准的 8 例患者(男 5 例,女 3 例,平均年龄 49 岁)纳入本研究(表 1)。纳入标准:①有复合手术指征(血管内治疗无法超选目标血管或病情复杂,需要结合多种手术方式);②需要同一时间在特定复合手术室完成一次性治疗;③同时行血管内造影或治疗及颅脑外科手术。排除标准:与本病无关的神经外科手术,如颅内肿瘤切除术、脑室-腹腔分流术或颅内血管旁路移植术等。8 例患者中伴有高血压 2 例,糖尿病 1 例,出现视力下降 1 例,出现双下肢瘫痪 2 例;急性起病 2 例,慢性起病 6 例。术前患者均接受头颅 CT、MRI 和脑血管 DSA 造影检查,予以准确评估,并根据静脉窦引流方向、有无皮质静脉逆流及血管构筑改变情况,作 Cognard 分型^[3]。本研究方案经南方医院伦理委员会批准,所有纳入患者及其家属签署治疗同意书。

表 1 8 例复杂 DAVF 患者临床资料

临床特征	数据
年龄(范围)/岁	49 (43~69)
男性/n	5
首发临床表现/n	
搏动性耳鸣	3
反复头痛	7
脑积水	3
局灶性神经功能缺损	8
目前或既往颅内出血	2
眼眶肿胀或眼球突出	1
血管构筑情况/n	
>1 个“共同通道”	4
静脉扩张/曲张	3
存在静脉窦狭窄/闭塞	3
DVAF 解剖位置/n	
横窦-乙状窦	3
枕骨大孔区	4
侧窦-窦汇区	1

1.2 手术方式

术前所有患者均经 DSA 明确 DAVF 供血动脉、引流静脉及瘘口具体解剖位置,结合实际情况选择

适宜手术方式和入路。气管插管全身麻醉后,依据体位消毒一侧腹股沟区并穿刺相应侧股动脉,5 F 单弯造影导管作造影和三维血管重建,确定 DAVF 与颅骨三维位置,通常采用扩大翼点入路、双额冠状切口、经颞枕部入路、顶枕部切口等手术入路,充分暴露 DAVF 周围肌肉组织结构,镜下充分识别供血动脉、瘘口部位、引流静脉及周围脑组织结构等,必要时作吲哚青绿(ICG)血管造影;仔细识别并充分分离 DAVF 供血动脉与其附着部位硬脑膜,进入瘘口部位,双极电凝刀离断供血动脉或充分电凝供血动脉及附着硬脑膜,也可通过 Marathon 微导管超选至供血动脉近端,注入液体栓塞剂堵塞部分瘘口后,再行 DAVF 完整切除。对 DAVF 伴静脉窦闭塞者,需直视下穿刺非闭塞处静脉窦后置 5 F 鞘管,将 5 F 导引导管送达近窦前静脉处, Mirage/Synchro 导丝配合 Marathon/Apollo 微导管超选至窦前静脉近端,先释放少许弹簧圈阻挡血流,后缓慢注入 Onyx 胶/EVAL 胶栓塞瘘口、窦前静脉及部分静脉窦壁;对伴有颅内血肿者,需进一步行血肿清除术和去骨瓣减压术。最后复查造影观察瘘口及引流静脉是否显影,不显影则逐层缝合头皮及皮下组织,手术结束。

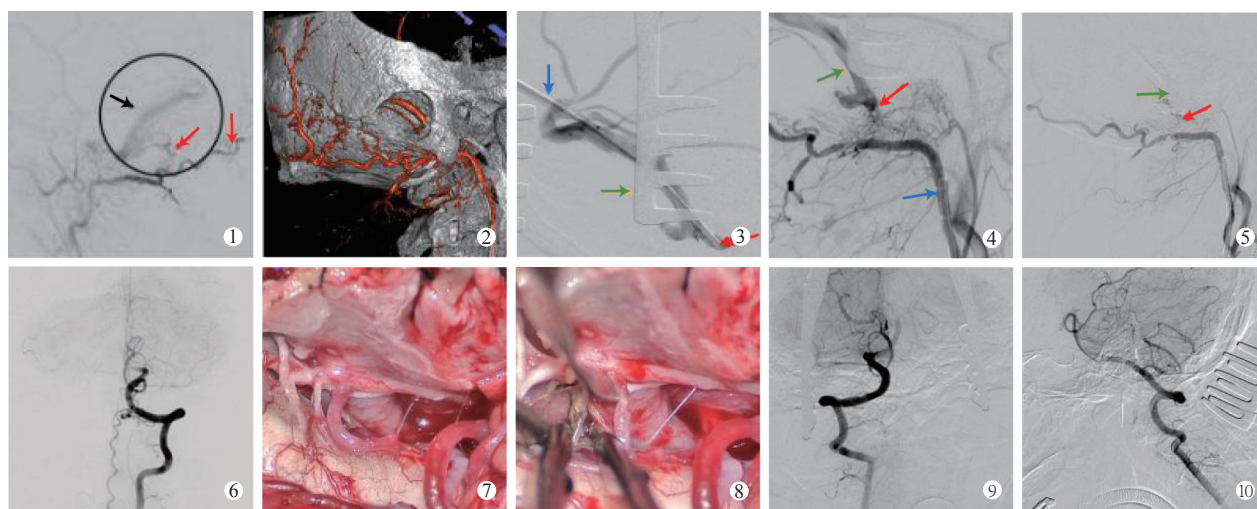
2 结果

对 2 例乙状窦闭塞和 1 例横窦狭窄患者,采用开颅手术切开静脉窦后建立栓塞入路,逆向栓塞多支供血动脉;对 4 例枕骨大孔区病变患者,采用术中脑血管造影配合开颅手术封闭瘘口 3 例,先栓塞部分髓周引流静脉后实现瘘口全切除 1 例;对 1 例侧窦-窦汇区病变患者,予以血管内栓塞部分瘘口后,再手术充分离断供血动脉。术中即刻造影评估 DAVF 瘘口闭塞情况显示,瘘口完全闭塞 7 例(7/8),近完全闭塞 1 例(1/8)。术后 1 例发生过癫痫,1 例出现轻度静脉性脑梗死,1 例出现动眼神经短暂性麻痹,1 例出现严重肺部感染和心包积液,1 例术后 2 周因突发肺栓塞死亡。随访 3~24 个月,7 例患者均接受康复训练,定期复查头颅 CT/MRI 和 DSA 显示恢复良好, Glasgow 预后量表(GOS)评分为 4~5 分,均无新发神经功能障碍,既往严重临床症状得到改善,改良 Rankin 量表(mRS)评分下降至 2~3 分。

典型患者 1: 男,63 岁,主诉“反复头痛 2 个月近加重 1 周”于 2018 年 6 月 12 日入院。头颅 MRI 结果提示右侧颞枕叶脑出血,查体神志清楚,左侧肢体肌力 1 级,余无特殊。脑血管 DSA 造影后明确诊断为右侧侧窦区 DAVF 伴乙状窦闭塞,主要由右侧

脑膜中动脉顶支、枕动脉脑膜支供血,遂决定行复合手术;开颅暴露乙状窦,直视下穿刺静脉窦后建立血管内栓塞途径,输注 Onyx 胶反向栓塞 DAVF 供血动脉,术中即刻行右侧颈外动脉造影见瘘口和引流静脉完全消失。术后 1 周患者神志清楚,左侧肌力 1+ 级,右侧肌力 4+ 级, mRS 评分 2 分。经 3 个月积极康复训练,左侧肢体肌力恢复至 2+ 级,遗留轻度神经功能障碍。典型患者 2: 男, 57 岁, 主诉“颈部疼痛伴下肢无力 1 年, 近加重 2 周”于 2018 年 1 月 25 日入院。查体神志清楚, 躯干和四肢肌张力

降低, 双上肢肌力 3 级, 双下肢肌力 1 级, T1 以下深浅感觉均减退, 双侧肱二头反射、桡骨膜反射、跟腱反射均减弱。颈椎 MRI 表现为髓内扩张和弥漫性中央 T2 信号异常, DSA 造影明确诊断为左侧枕骨大孔区 DAVF, 综合考虑后予以复合手术(方法同上), 术中造影见 DAVF 瘘口完全消失。随访 1 年复查造影见瘘口完全闭塞, 部分神经功能障碍改善, 双上肢肌力恢复至 5 级, 双下肢肌力 4 级, ALS 功能评定量表评分降至 2~3 分, 生活质量总体提高。见图 1。



▲患者 1: ①右侧颈外动脉 DSA 造影示乙状窦两端闭塞; ②三维血管重建示 DAVF 解剖位置; ③穿刺乙状窦并注射对比剂; ④释放弹簧圈, 缓慢注入 Onyx 胶栓塞瘘口、窦前静脉和部分乙状窦; ⑤右侧颈外动脉复查造影见 DAVF 瘘口和向颅内引流静脉完全消失 ▲患者 2: ⑥左侧椎动脉造影示枕骨大孔区 DAVF 和弯曲引流静脉; ⑦⑧镜下充分暴露 DAVF 瘘管, 电凝离断确定的动脉化静脉; ⑨⑩术中即刻造影见 DAVF 瘘口完全消失

图 1 典型患者复合手术治疗过程

3 讨论

DAVF 通常由 1 支或多支供血动脉通过硬脑膜壁上瘘口直接引流至静脉结构, 如果存在软膜动脉参与供血或皮层静脉逆流, 可进一步导致疾病复杂化。DAVF 血管构筑复杂, 具体病因尚不完全清楚。目前有“静脉高压-低氧诱导因子(HIF)-血管内皮细胞生长因子(VEGF)-血管生成”假说^[4], 即高流量瘘盗血效应或静脉高压诱导 HIF-1 表达, 引起机体缺氧和慢性局灶性脑灌注不足, 进而刺激 VEGF 表达并介导 DAVF 分流血管生成。“共同通道”理论由 Shapiro 等^[5]提出, 即部分横窦和乙状窦 DAVF 窦壁内有一供血动脉总的共同通道, 由多个小供血动脉汇合, 这些共同通道汇合成的终端通道既往常被视作静脉窦结构, 而实质上是一动脉端汇聚通道, 可通过高度靶向栓塞此共同通道达到治疗目的。

DAVF 临床症状可能是突然的或是缓慢进展

的, 主要随瘘口解剖位置、动脉化静脉引流及皮层静脉逆流方向变化而异。横窦或乙状窦附近的 DAVF 血流量增加、吻合血管扩张及毛细血管括约肌功能丧失, 使局部静脉扩张、血液淤滞或逐步动脉化, 从而引起多种临床表现, 如反复头痛头晕、搏动性耳鸣等; 海绵窦区 DAVF 较少发生逆行皮层静脉引流, 表现为轻微神经功能症状和特征性眼部症状, 如眼肌麻痹、眼球肿胀突出和视力下降; 位于直窦、Galen 静脉的 DAVF 可能会因深静脉系统引流, 导致双侧丘脑静脉高压和脑水肿, 引发认知功能损害^[6], 如进展性丘脑痴呆。Cognard III~IV 型患者静脉高压和动脉化引流静脉破裂所致脑内出血, 可能会引起局灶性神经功能缺损, 而不断进展的逆行皮层静脉引流可能导致严重神经系统后遗症^[7]。Cognard V 型患者早期影像表现多为阴性, 出现明显脊髓水肿和异常血管流空影时通常已发生严重神经

功能障碍,如突发四肢瘫痪^[8]。脑血管造影是明确诊断 DAVF 所必需,其可准确识别供血动脉、异常吻合和引流静脉位置。

目前 DAVF 治疗方法包括显微外科手术治疗、血管内介入治疗和伽马刀放射治疗等^[9]。虽然标准血管内治疗对于 Congard 低级别分型 DAVF 具有良好治愈效果,但对复杂和高风险 DAVF,通常很难超选供血动脉^[10]。应用液体栓塞剂经动脉途径栓塞通常不能完全闭合瘘管,因为瘘口周围存在大量小动脉,可持续供应病变血流;液体栓塞剂也有较高的血管再通率,并有较高的逆流穿入脑神经皮质静脉或营养供应血管的风险,分别导致局灶性神经功能缺损和脑神经麻痹。诚然侵入性最小的治疗措施最为理想,但通常并不完全能成功,不完全栓塞和手术断流术仅暂时降低风险因素,不能阻止 DAVF 进展,并使后续治疗变得困难。新型复合手术不仅能克服单纯外科手术和单纯血管内治疗的一些弊端,也可更安全更顺利地治疗此类疾病^[11]。Kong 等^[12]报道采用静脉栓塞联合外科手术切除治疗 7 例复杂 DAVF 患者,实现了通过复合手术完全清除病变的目的,且无治疗相关并发症。复合手术治疗复杂 DAVF 的可能优势:①可明确镜下瘘口定位与术中血管造影定位是否一致,提高瘘口切除精确性和彻底性;②对并发静脉窦血栓闭塞患者,可直视下穿刺静脉窦,顺利栓塞引流静脉并封闭瘘口^[13];③解决了血管内超选困难而无法准确栓塞细小供血动脉的弊端;④可消除普通开颅手术需广泛暴露,减少直接切除供血动脉和高流量瘘口所致大出血风险;⑤避免栓塞不全时软脑膜静脉可能导致瘘管重新移位开放,并使其他引流静脉超负荷所致病情反复和颅内出血情况发生;⑥可在有效治疗 DAVF 的同时,清除颅内或脊髓内血肿,有利于改善患者部分临床症状。本研究结果显示,除 1 例因意外肺栓塞死亡患者外,其余患者初始严重临床症状均显著改善,术后 mRS 评分下降,四肢肌力改善,总体预后较好。

综上所述,复合手术治疗静脉窦闭塞或多“共同通道”的复杂 DAVF,不仅能提供明确的治疗入路,还能额外清除颅内血肿,最终通过一次全面手术使 DAVF 瘘口彻底永久性闭合,术后近中期临床预后较好。由于本研究患者数有限,后续仍需大量临床资料进一步确定复合手术对复杂 DAVF 治疗的安

全性和有效性。

[参 考 文 献]

- [1] Jabbour P, Tjoumakaris S, Chalouhi N, et al. Endovascular treatment of cerebral dural and pial arteriovenous fistulas[J]. *Neuroimaging Clin N Am*, 2013, 23: 625-636.
- [2] Mohammed N, Hung YC, Xu ZY, et al. A propensity score-matched cohort analysis of outcomes after stereotactic radiosurgery in older versus younger patients with dural arteriovenous fistula: an international multicenter study[J]. *World Neurosurg*, 2019, 125: E1114-E1124.
- [3] Cognard C, Gobin YP, Pierot L, et al. Cerebral dural arteriovenous fistulas: clinical and angiographic correlation with a revised classification of venous drainage[J]. *Radiology*, 1995, 194: 671-680.
- [4] van Dijk JM, Terbrugge KG, Willinsky RA, et al. Clinical course of cranial dural arteriovenous fistulas with long-term persistent cortical venous reflux[J]. *Stroke*, 2002, 33: 1233-1236.
- [5] Shapiro M, Raz E, Litao M, et al. Toward a better understanding of dural arteriovenous fistula angioarchitecture: superselective transvenous embolization of a sigmoid common arterial collector[J]. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2018, 39: 1682-1688.
- [6] Holekamp TF, Mollman ME, Murphy RK, et al. Dural arteriovenous fistula-induced thalamic dementia: report of 4 cases[J]. *J Neurosurg*, 2016, 124: 1752-1765.
- [7] Reynolds MR, Lanzino G, Zipfel GJ, et al. Intracranial dural arteriovenous fistulae[J]. *Stroke*, 2017, 48: 1424-1431.
- [8] Jermakowicz WJ, Weil AG, Vlasenko A, et al. Cognard type V intracranial dural arteriovenous fistula presenting in a pediatric patient with rapid, progressive myelopathy[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2017, 20: 158-163.
- [9] Zogopoulos P, Nakamura H, Ozaki T, et al. Endovascular and surgical treatment of spinal dural arteriovenous fistulas: assessment of post-treatment clinical outcome[J]. *Neurol Med Chir (Tokyo)*, 2016, 56: 27-32.
- [10] Sasamori T, Hida K, Yano S, et al. Long-term outcomes after surgical and endovascular treatment of spinal dural arteriovenous fistulae[J]. *Eur Spine J*, 2016, 25: 748-754.
- [11] 陈 珑, 程永德. 再论复合手术[J]. *介入放射学杂志*, 2019, 28: 105-108.
- [12] Kong DS, Kwon KH, Kim JS, et al. Combined surgical approach with intraoperative endovascular embolization for inaccessible dural arteriovenous fistulas[J]. *Surg Neurol*, 2007, 68: 72-78.
- [13] 张 坤, 薛绛宇, 李天晓, 等. 静脉窦开通治疗硬脑膜动静脉瘘伴静脉窦闭塞 3 例[J]. *介入放射学杂志*, 2016, 25: 345-349.

(收稿日期: 2019-03-15)

(本文编辑: 边 倩)