
Nugaros smegenų kietojo dangalo arterioveninės fistulės: gydymas endovaskulinės embolizacijos būdu

N. Golubovas*
V. Pauza*
E. Vaicekavičius**
S. Lukoševičius**

*Kauno medicinos universiteto
Neurologijos klinika

**Kauno medicinos universiteto
Radiologijos klinika

Santrauka. Nugaros smegenų kraujagyslių malformacijos sudaro nevienalytę kraujagyslių patologijos grupę. Pagal visuotinę Anson JA ir Spetzler RF klasifikaciją nugaros smegenų kraujagyslių malformacijos (KM) gali būti skirstomos į keturias grupes (1 tipas – stuburo smegenų kietojo dangalo arterioveninės fistulės (AVF), 2 tipas – mazginės stuburo smegenyse esančios arterioveninės malformacijos (AVM), 3 tipas – juvenilinės arterioveninės malformacijos, galinčios būti intra- ir ekstrameduliariai; 4 tipas – intradurinės ekstramedulinės AVF stuburo smegenų paviršiuje. Trumpesnėje klasifikacijoje išskiriamos dvi grupės – nugaros smegenų kietojo dangalo AVF (1 tipas) bei intradurinės malformacijos (2–4 tipai).

Dažniausiai pasitaikanti nugaros smegenų KM rūšis yra kietojo dangalo AVF – patologinės jungtys tarp arterijų ir venų nugaros smegenų kietojo dangalo maiše. Dauguma (95%) kietojo dangalo fistulių lokalizuojasi apatiniame krūtininiame ir juosmeniniame stuburo segmentuose. Šios malformacijos kliniškai gali pasireikšti galūnių nusilpimu, galūnių tirpimu, jutimų sutrikimais, dubens organų funkcijos sutrikimais. Kietojo dangalo AVF diagnostika daugiausia remiasi magnetinio rezonanso tomografijos (MRT), spinalinės angiografijos duomenimis. Pristatomas atvejis, kai 56 metų vyrui atsirado progresuojantis kojų silpnumas, apatinių galūnių tirpimas, tapo sunkiau šlapintis. Atliktame stuburo MRT stebėti pakitimai būdingi arterioveninei malformacijai. Siekiant patikslinti diagnozę atliktas stuburo smegenų angiografinis tyrimas: Th10 lygyje iš kairės interkostalinės arterijos pildosi didelė arterioveninė fistulė. Chirurginis gydymas ir endovaskulinė embolizacija yra pagrindiniai nugaros smegenų KM gydymo metodai. Aprašytu atveju gydymui taikyta endovaskulinė embolizacija. Po atliktos procedūros ligonio būklė pagerėjo, sustiprėjo apatinių galūnių jėga, jos nebetirpo.

Raktažodžiai: nugaros smegenų arterioveninės malformacijos (AVM), nugaros smegenų kietojo dangalo fistulė (AVF), spinalinė angiografija, endovaskulinė embolizacija.

Neurologijos seminarai 2006; 10(28): 94–98

IVADAS

Nugaros smegenų KM gali būti klasifikuojamos į keturias arba dvi grupes. Pagal platesnę Anson JA ir Spetzler RF klasifikaciją yra keturi kraujagyslinių malformacijų tipai [1]:

1 tipas: stuburo smegenų kietojo dangalo fistulės;

2 tipas: glomusinės, mazginės (*glomus*) arterioveninės malformacijos, besilokalizuojančios stuburo smegenų parenchimoje;

3 tipas: juvenilinės arterioveninės malformacijos, galinčios būti intra- ir ekstrameduliariai;

4 tipas: intradurinės ekstramedulinės arterioveninės fistulės stuburo smegenų paviršiuje.

Pagal patofiziologiją galima išskirti dvi pagrindines KM grupes: stuburo smegenų kietojo dangalo AVF (1 ti-

pas) ir intradurinės kraujagyslinės malformacijos (2–4 tipai).

Kietojo dangalo fistulės (patologinės jungtys tarp arterijų ir venų nugaros smegenų kietojo dangalo maiše) yra dažniausiai pasitaikanti nugaros smegenų KM rūšis (80–85% visų nugaros smegenų KM). Kietojo dangalo AVF maitinama radikulomeninginių segmentinių nugaros smegenų arterijų šakelių, o pati patologinė jungtis dažniausiai yra išeinančios nervinės šaknelės kietojo dangalo maiše. Fistulė retrogradiškai radikulomeninginėmis venomis drenuojasi į nugaros smegenų veninį rezginį [2]. Dėl to nugaros smegenyse susidaro veninio kraujo hiperekmija. Dauguma (95%) šių AVF lokalizuojasi apatiniame krūtininiame ir juosmeniniame stuburo segmentuose [2, 3].

Magnetinio rezonanso tomografija (MRT) dėl savo neinvaziškumo ir pakankamo tikslumo tapo pirmo pasirinkimo metodu pradiniame pacientų, kuriems įtariama nugaros smegenų KM, tyrimo etape [3–7]. MRT vaizduose (tiek T1, tiek T2 režimu) nugaros smegenų KM atrodo kaip vingiais išsidėsčiusios struktūros su kraujo tėkmės MR signalu. Kraujo tėkmės signalas matomas malformacijos mazge, išsiplėtusiose maitinančiose arterijose ar drenuo-

Adresas:

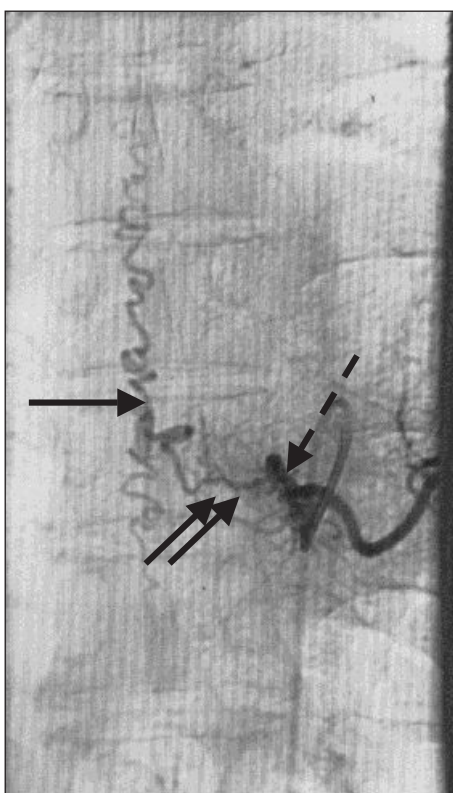
N. Golubovas
KMUK Neurologijos klinika
Eivenių g. 2, LT-50009 Kaunas



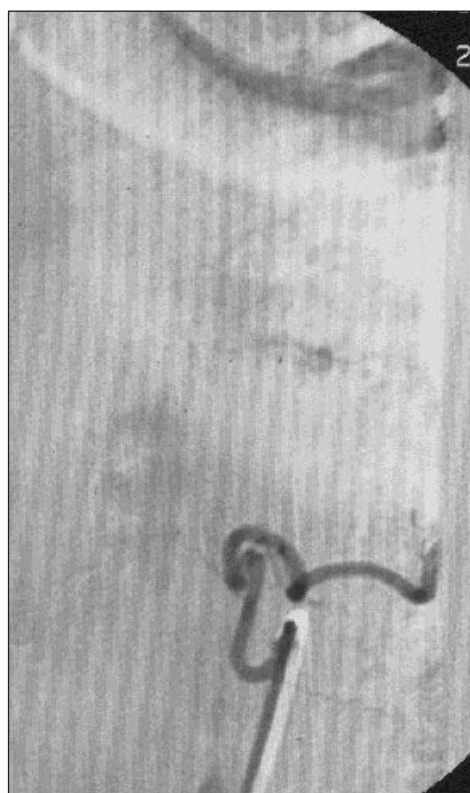
1 pav. MRT, T2 režimas, sagitalinė plokštuma. Ištinę rodykle pažymėtas MR kraujo tėkmės signalas kietojo dangalo maišo ertmėje, apie nugaros smegenis. Nugaros smegenų parenchimoje gliozės požymiai (punktyrinė rodyklė).



2 pav. MRT, T1 režimas sušvirkštus paramagnetinio kontrastinio preparato, sagitalinė plokštuma. Rodykle pažymėta sutrumpėjusio T1 signalo pakitusios kraujotakos zona.



3 pav. SSA, tiesinė projekcija, vaizdas prieš fistulės embolizavimą. Ištinę rodyklė – perimedulinis veninis rezginys, punktyrinė rodyklė – selektyviai kateterizuota išplėsta maitinančioji kietojo dangalo arterija (ties Th 10 šaknele), dviguba rodyklė – kietojo dangalo fistulės zona.



4 pav. SSA, vaizdas po fistulės embolizavimo. Perimedulinis veninis rezginys nebesikonstruoja.

jančiose venose (1 pav.). Kartais galima nustatyti pakitimus ir nugaros smegenų parenchimoje – nugaros smegenų skerspjūvio padidėjimą dėl malformacijos mazgo, heterogeninį MR signalą dėl įvairaus šviežumo kraujo degradacijos produktų, taip pat kraujotakos nepakankamumo požymius (išemiją, gliozę) [8]. Sušvirkštus paramagnetinio kontrastinio preparato, nustatomas būdingas MRT1 signalo sutrumpėjimas (2 pav.), patologiškai išsiplėtusios kraujagyslės matomos ryškiau [8]. Pateikiama straipsnių ir apie vis didėjančias MR angiografijos galimybes diagnozuojant nugaros smegenų KM [9–11].

Tikslesnė informacija apie nugaros smegenų KM matinčias ir drenuojančias kraujagyslių šakas gaunama atliekant intraarterinę skaitmeninę subtrakcinę angiografiją, kurios metu galima ir gydyti, pvz., embolizuoti fistulę (3–4 pav.).

Pateikiama ligos istorija 56 metų vyro, kuris buvo tiriamas dėl progresuojančio kojų silpnumo, kojų tirpimo, dubens organų funkcijos sutrikimo. Remiantis MRT ir spinalinės angiografijos duomenimis, diagnozuota kietojo dangalo AVF ties Th10 slanksteliu. Buvo gydoma endovaskulinės embolizacijos būdu. Po atliktos procedūros stebėtas klinikinis pagerėjimas: sustiprėjo kojų jėga, jos nebetirpo.

ATVEJO APRAŠYMAS

56 metų vyrui pamažu atsirado kojų silpnumas, aptirpo sėdmenys, tapo sunkiau šlapintis. Ligonis nesustojęs nuėdavo 200–300 m., vėliau – dar mažiau. Po 4 mėnesių nuo minėtų skundų atsiradimo pradžios ėmė tirpti ir kūnas iki pilvo apatinės dalies. Ligonis anksčiau neturėjo galvos ir stuburo traumų. Jis buvo tiriamas neurologijos stacionare. Atlikta stuburo Th6-Th12 slankstelių kompiuterinė tomografija (KT) – židinių tankio pokyčių nugaros smegenyse, pataloginių pokyčių kaulinėse struktūrose nerasta. Tolesniam tyrimui ligonis nukreiptas į III lygio neurologijos stacionarą. Tiriant neurologiškai: sąmoningas, orientuotas, vyzdžiai d=k, akių obuoliai laisvi, veidas simetriškas, liežuvis vidurio linijoje, rankų raumenų jėga gera, rankų sausgysliniai refleksai simetriški, rankų pataloginių refleksų nėra, pilvo odos refleksai: viršutiniai išgaunami, viduriniai, apatiniai neišgaunami, kojų raumenų jėga: proksimaliai 2 balai, distaliai 4 balai, kojų sausgysliniai refleksai simetriški, sustiprėję, abipus pataloginiai Babinskio refleksai, stebima nežymi dešinėsios šlaunies raumenų atrofija, paviršiniai ir gilieji jutimai nesutrikę, piršto nosies mėginius atlieka gerai, meninginių simptomų nėra.

Neurologijos stacionare atlikta mielografija – stuburo kanalas nedeformuotas. Galvos smegenų KT (siekiant atmesti parasagitalinį procesą) – židinių tankio pokyčių nestebėta. Atlikus elektroneuromiografiją (ENM), pakitimai rodo centrinio motorinio neuroono pažeidimą. Buvo atliktas torakolumbalinės srities MRT be ir su i/v Omniscan kontrastavimu: apimtas Th7-S1 stuburkaulių lygis, ties Th7-Th9 lygiu stuburo kanale, susijusios su nugaros sme-

genimis T2 režimu hipointensinės „bangelių“ pavidalo struktūros (1 pav.); torakalinėje apatinėje nugaros smegenų dalyje T2 režimu hiperintensinis signalas – gali būti būdingas mielopatiniam židiniui; atliekant tyrimą su i/v kontrastavimu stebimas netolygus minėtų „bangelių“ kontrastavimasis (2 pav.). Remiantis MRT, daroma išvada, kad yra duomenų, patvirtinančių nugaros smegenų KM. Tam patikslinti reikalingas angiografinis tyrimas.

Atlikus stuburo smegenų angiografinį tyrimą (3 pav.): Th10 slankstelio lygyje iš kairės interkostalinės arterijos pildosi didelė kietojo dangalo AVF, įtariamoms jos kolateralėms iš priešingos pusės interkostalinės arterijos; kitų susijusių su AVF arterijų nepavyko rasti.

Ligos eigoje ligonio būklė ėmė blogėti, apatinių galūnių jėga sumažėjo iki 1 balo, išliko šlapimo ir išmatų susilaikymas. Ligonis negalėjo savarankiškai atsistoti, judėti.

AVF siekta šalinti endovaskulinės embolizacijos būdu. Selektinė interkostalinės arterijos kateterizacija pradžioje buvo atliekama naudojant 4F kalibro kateterius ir 0,035“ nukreipiančias vielas. Esant labai ryškiam interkostalinės arterijos persilenkimui ties jos žiotimis nepavyko selektyvai įkišti kateterio į reikiamas spinalines šakas. Dėl to procedūra buvo nutraukta, siekiant kitos procedūros metu kateterizuoti stuburo smegenų arterines šakutes mikrokateteriais. Numatyta procedūra buvo sėkminga: mikrokateteris buvo įkištas į reikiamas spinalines šakas. Po to fistulės embolizavimas buvo atliktas naudojant ONIX klizus. Kontrolinėje angiogramoje (4 pav.) AVF ir jos veniniai rezginiai nebesikontrastavo.

Po atliktos kietojo dangalo AVF embolizacijos ligonio būklė pagerėjo. Sustiprėjo kojų jėga iki 3–4 b, apatinės galūnės nebetirpo. Ligonis galėjo savarankiškai atsistoti, judėti su vaikštyne. Ligonis nukreiptas tolesniam reabilitaciniam gydymui, rekomendavus po 3 mėn. atvykti kontroliniam angiografiniam tyrimui.

APTARIMAS

Šis atvejis gali iliustruoti kai kuriuos sunkumus diagnozuojant nugaros smegenų KM. Taip yra ir todėl, kad jos yra santykinai retos. Pastaruoju metu nugaros smegenų KM dažniau diagnozuojamos atliekant neurovizualinius tyrimus: MRT, spinalinės angiografijos. Skiriasi pacientų, kuriems nustatyta kietojo dangalo AVF ar intradurinė kraujagyslinė malformacija, anamnezė, neurologiniai radiniai, skirtingi yra ir neurovizualinių tyrimų radiniai (lentelė) [12].

Nugaros smegenų KM etiologija nėra tiksliai apibrėžta. Intradurinės AVM dažniau būna jaunesniems pacientams ir manoma, kad jos yra įgimtos. Kietojo dangalo fistulės dažniau pasitaiko pacientams tarp trisdešimties ir šešiasdešimties metų amžiaus ir manoma, kad jos dažnai atsiranda dėl patirtos traumos. Aprašytu atveju, pasak ligonio, galvos ir stuburo traumų anksčiau nebuvo.

Nugaros smegenų KM kliniškai gali pasireikšti galūnių nusilpimu (parezėmis ar paralyžiais), galūnių tirpimu, pa-

Lentelė. Kietojo dangalo AVF ir intradurinių KM skirtumai (pagal Harrop S J)

	Kietojo dangalo AVF	Intradurinė KM
Anamnezė, nusiskundimai, klinikiniai simptomai	Pacientai, vyresni nei 40 m.	Jaunesni nei 30 m.
	Nusiskundimai vargina mėnesiais, metais, progresuoja kojų silpnumas, tuštinimosi ir šlapinimosi sutrikimai. Simptomams dažnai turi įtakos judesiai ar kūno padėties pakeitimas, dėl ko vyksta nugaros smegenų hiperemija ir vystosi galūnių silpnumas. Šaknelinis komponentas būna retai.	Klinika ūmi, atitinkami simptomai pasireiškia įvykus hemoragijai (tiek subarachnoidinei, tiek intraparenchiminei), išemijai ar (rečiau) nugaros smegenų kompresijai.
	Pažeidimas dažniau apatiniame krūtininiame-juosmeniniame lygyje.	Pažeidimas gali būti platus, įvairiuose nugaros smegenų lygiuose.
Neurologinio tyrimo duomenys	-	Ūžesys virš nugaros smegenų.
	Hiperrefleksija žemiau pažeidimo lygio.	Hiperrefleksija žemiau pažeidimo lygio.
	Patologiniai refleksai.	Patologiniai refleksai.
	Galūnių silpnumas.	Galūnių silpnumas.
	Padidėjęs raumenų tonusas.	Padidėjęs raumenų tonusas.
	Tarpvietės jutimo sutrikimai.	-
	Eisenos sutrikimas.	-
	Lumbalinės punkcijos rezultatai – be pakeitimų.	Įvykus SAH – lumbalinės punkcijos metu nustatomas kruvinas likvoras.
Radiologinio tyrimo duomenys	KT dažnai normali. Galima matyti išsiplėtusias kraujagysles kietojo dangalo maiše.	KT dažnai normali. Įvykus SAH galima matyti hemoraginį turinį likvoro. Retai galima matyti išsiplėtusias kraujagysles kietojo dangalo maiše.
	Mielografija su ar be KT – nustatomos išsiplėtusios kraujagyslės kietojo dangalo maiše.	
	MRT nustatomos pakitusios kraujagyslės su intensyvios kraujotakos MR signalu, kurios kontrastuojasi MR kontrastine medžiaga.	
	MRT nugaros smegenų parenchimoje galima nustatyti vazogeninę edemą. Tikslios fistulės vietos nustatyti negalima.	MRT nugaros smegenų parenchimoje galima nustatyti patį AVM mazgą, parenchimos edemą, hemoragiją.
	Arteriografija – tai pagrindinis diagnostikos metodas. Galima nustatyti tikslią fistulės buvimo vietą, atlikti endovaskulinį gydymą. Galima diferencijuoti greitos ir lėtos tėkmės malformacijas.	

restezijomis, jutimų sutrikimais, dubens organų funkcijos sutrikimais, nugaros skausmu [13]. Kaip minėta, aprašytu atveju buvo progresuojantis kojų silpnumas, kūno tirpimas iki pilvo apatinės dalies, dalinis šlapimo susilaikymas. Ligonio tyrimo pradžioje, diferencijuojant nugaros smegenų pažeidimą nuo galimo parasagitalinio proceso galvos smegenyse, atlikta galvos smegenų KT – židinių tankio pokyčių nestebėta. Siekiant atmesti pataloginius pokyčius stuburo kanale atlikta mielografija – stuburo kanalo deformacijos nestebėta. Atliktas ENMG tyrimas, išvada: pakitimai nurodo centrinio motorinio neurono pažeidimą. AVM sąlygotą neurologinę simptomatiką reikėtų diferencijuoti ir nuo nugaros smegenų infarkto, kuriam įvykus neurologinė simptomatika išryškėja per kelias ar keliolika minučių, metastazinio ar pirminio spinalinio naviko, kuriam esant neurologinė simptomatika išryškėja per kelias valandas ar paras, sarkoidozės, infekcinės kilmės ligų (virusinis mielitas, abscesas), kurioms būdingas karščiavimas. Taip pat diferencijuojama nuo išsėtinės sklerozės paūmėjimo, Guillain-Barre sindromo. Aprašytu atveju, išliekant neiškliai diagnozei, atliktas stuburo MRT, tyrimo metu rasti pakitimai būdingi AVM. Diagnozė patikslinta atlikus spinalinę angiografiją, kurios metu stebėta Th10 lygyje iš kairės

interkostalinės arterijos besipildanti didelė arterioveninė fistulė.

Esant intradurinėms arterioveninėms fistulėms galima spinalinė subarachnoidinė hemoragija, kurią lydi ryškus skausminis sindromas, meninginiai simptomai.

Atliktos studijos patvirtina, kad hemoragijos ir kitų arterioveninių malformacijų rizika su amžiumi didėja. Chirurginis gydymas ir endovaskulinė embolizacija yra pagrindiniai nugaros smegenų AVM gydymo metodai. Priklausomai nuo pažeidimo apimties, chirurgiškai šalinti AVM paprastai sunku techniškai, yra didelė nugaros smegenų pažeidimo, kraujavimo rizika. AVM gali būti šalinamos endovaskulinės embolizacijos būdu. Procedūros metu uždaromos AVM maitinančios kraujagyslės, taip sumažinant ar nutraukiant kraujo pritekėjimą į AVM. Kai kuriais atvejais taikant šį gydymo metodą AVM visiškai užanka, kartu išvengiama kitų, didesnę riziką turinčių, gydymo metodų [14–16]. Todėl aprašytu atveju ir buvo pasirinktas pastarasis gydymo būdas, po kurio stebėtas klinikinis pagerėjimas, dalinis neurologinių simptomų regresavimas.

Gauta:
2006 03 28

Priimta spaudai:
2006 04 22

Literatūra

1. Anson JA, Spetzler RF. Interventional neuroradiology for spinal pathology. *Clin Neurosurg* 1992; 39: 388–417.
2. Aminoff MJ, Barnard RO, Logue V. The pathophysiology of spinal vascular malformations. *J Neurol Sci* 1974; 23: 255–63.
3. Marsh WR. Vascular lesions of the spinal cord: history and classification. *Neurosurg Clin N Am* 1999; 10: 1–8.
4. Masaryk TJ, Ross JS, Modic MT, Ruff RL, Selman WR, Ratcheson RA. Radiculomeningeal vascular malformations of the spine: MR imaging. *Radiology* 1987; 164: 845–9.
5. Minami S, Sagoh T, Nishimura K, et al. Spinal arteriovenous malformation: MR imaging. *Radiology* 1988; 169: 109–15.
6. Terwey B, Becker H, Thron AK, et al. Gadolinium-DTPA enhanced MR imaging of spinal dural arteriovenous fistulas. *J Comput Assist Tomogr* 1989; 13: 33–7.
7. Gilbertson JR, Miller GM, Goldman MS, Marsh WR. Spinal dural arteriovenous fistulas: MR and myelographic findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 1995; 16: 2049–57.
8. Bazan III, C. Spinal cord and intradural disease. In: Edelman RR, ed. *Clinical magnetic resonance imaging*. Philadelphia: W. B. Saunders Company, 1996; 1181–3.
9. Saraf-Lavi E, Bowen BC, Quencer RM, et al. Detection of spinal dural arteriovenous fistulae with MR imaging and contrast-enhanced MR angiography: sensitivity, specificity, and prediction of vertebral level. *AJNR Am J Neuroradiol* 2002; 23: 858–67.
10. Farb RI, Kim JK, Willinsky RA. Spinal dural arteriovenous fistula localization with a technique of first-pass gadolinium-enhanced MR angiography: initial experience. *Radiology* 2002; 22: 843–50.
11. Bowen BC, Saraf-Lavi E, Pattany PM. MR angiography of the spine: update. *Magn Reson Imaging Clin N Am* 2003; 11: 559–84.
12. eMedicine Clinical Knowledge Base [database on the Internet]. New York: eMedicine.com, Inc; © 1996–2005. Harrop SJ (auth.). *Vascular Malformations of the Spinal Cord* [updated 2006 Mar 29]. Available from <http://www.emedicine.com/med/topic2896.htm>
13. Budrys V. *Klinikinė neurologija*. Vilnius, 2003; 167–8.
14. Krings T, Mull M, Reinges MH, Thron A. Double spinal dural arteriovenous fistulas: case report and review of the literature. *Neuroradiology* 2004; 46: 238–42.
15. Muraszko KM, Oldfield EH. Vascular malformations of the spinal cord and dura. *Neurosurg Clin N Am* 1990; 1: 631–52.
16. Rodesch G, Lasjaunias P. Spinal cord arteriovenous shunts: from imaging to management. *Eur J Radiol* 2003; 46: 221–32.

N. Golubovas, V. Pauza, E. Vaicekavičius, S. Lukoševičius

SPINAL DURAL ARTERIOVENOUS FISTULAS: TREATMENT BY ENDOVASCULAR EMBOLISATION

Summary

Spinal vascular malformations are classified into the following 4 types: 1. spinal dural arteriovenous fistulas, 2. glomus arteriovenous malformations, the abnormal vessels are intramedullary in location, 3. juvenile malformations that can be intramedullary and extramedullary in location, 4. intradural extramedullary arteriovenous fistulas on the surface of the cord. Spinal vascular malformations can also be classified into 2 general groups: spinal dural arteriovenous fistulas (type 1), and intradural malformations (types 2–4). Dural sack fistulas (abnormal connections between arteries and veins within the spinal dura mater) are the most common spinal AVMs. The majority (95%) of dural sack fistulas are located in the lower thoracic and lumbar spinal segments. Clinical symptoms of AVMs may include limb weakness, numbness, sensory disorders, and pelvic disorders. AVMs are mostly diagnosed by magnetic resonance imaging (MRI), and spinal angiography. A case of 56 year old male with progressing leg weakness, numbness and aggravated urination is presented. In MRI test alterations characteristic to AVMs were observed. For specification of the diagnosis spinal angiography was performed: at the level of Th10 a massive arteriovenous fistula is supplied by the left intercostal artery. The main treatment methods of spinal AVMs are surgical treatment and endovascular embolisation. In this case endovascular embolisation was performed. After procedure the patient's condition improved, strength of the lower extremities increased, and numbness disappeared.

Keywords: spinal arteriovenous malformations (AVM), spinal dural sack fistula (AVF), spinal angiography, endovascular embolisation.