

# Retroperitoneaalne arteriovenoosne malformatsioon enneaegsel vastsündinul

Maksim Zagura<sup>1</sup>, Heleri Konik<sup>1</sup>, Helgi Padari<sup>2</sup>, Tuuli Metsvaht<sup>2</sup>, Toomas Hermlin<sup>1</sup>, Liis Salumäe<sup>3</sup>, Tiiu Tomberg<sup>1</sup>

Eesti Arst 2015;  
94(11):668–673

Saabunud toimetusse:  
31.08.2015  
Avaldamiseks vastu võetud:  
02.09.2015  
Avaldatud internetis:  
18.12.2015

<sup>1</sup> Tartu Ülikooli Kliinikumi radioloogiakliinik,  
<sup>2</sup> Tartu Ülikooli Kliinikumi anestesiooloogia ja intensiivravi kliinik,  
<sup>3</sup> Karolinska Ülikooli Haigla kliinilise patoloogia-tsütoloogia osakond

Kirjavahetajaautor:  
Maksim Zagura  
[maksimzagura@gmail.com](mailto:maksimzagura@gmail.com)

Võtmesõnad:  
arteriovenoosne malformatsioon, embolisatsioon, enneaegne vastsündinu, pulmonaalne hüpertensioon, hüdrops

Arteriovenoosne malformatsioon (AVM) on harva esinev arenguanomaalia, mis koosneb düsplastiliste arterite ja veenide võrgustikust. Kirjandusest võib leida vaid üksikuid haigusjuhtude kirjeldusi retroperitoneaalruumi magistraalveresooni haaravate AVMide kohta.

Artiklis on kirjeldatud haigusjuhtu, kus enneaegsena sündinud lapsel tekkisid väljendunud südamepuudulikkus, anasarka, respiratoorne düspnoe ja metaboolne atsidoos. Angiograafial tuvastati AVM lumbaalsete toitearteritega ja vargussündroomiga vistseraalsetest arteriaalsetest tüvedest. Tehti toitearterite emboliseerimine koilide ja tsüanoakrüüllimiga, kuid südamepuudulikkus, oksügenatsioonihäire ja metaboolne atsidoos süvenesid. Vastsündinu suri neljandal elupäeval. Lahangul tuvastati tsüstjatest aladest koosnev AVM, mis oli ühenduses kõhuaordiga ja haaras endasse alumise õõnesveeni. Tegemist on seni teadaolevalt esimese haigusjuhuga, kus AVMi embolisatsioon tehti väga väikese sünnikaaluga enneaegsel vastsündinul.

Artikli ingliskeelne versioon on avaldatud ajakirjas *International Journal of Clinical Pediatrics* (1).

## KIRJANDUSE ÜLEVAADE

Arteriovenoossed malformatsioonid (AVM) on heterogeense struktuuriga moodustised, mis esinevad nii lastel kui ka täiskasvanutel ning mis on seotud tüsistuste ja suremuse suure riskiga (2). Rahvusvahelise vaskulaarsete anomaaliade uurimise ühingu (*International Society for the Study of Vascular Anomalies*, ISSVA) definitsiooni kohaselt on AVM kaasasündinud anomaalia, mis koosneb toitearteritest, *nidus*'est ehk düsplastiliste arterite ja veenide kogumist ning drenaažveenidest. Kapillaare asendavad rohked ühendussooned arteriaalse ja venoosse süsteemi vahel.

Vaskulaarsete malformatsioonide teket seostatakse endoteliaalsete eellasrakkude proliferatsiooni, diferentseerumise ja apoptoosi häiretega (3). Seda võivad mõjutada vaskulaarse endoteeli kasvufaktori (VEGF) retseptori defektid ja rakusisesed signaalsüsteemihäired (3), kuid täpne patogenees jääb veel paljuski ebaselgeks. Enamikul juhtudel esinevad vaskulaarsed malformatsioonid isoleeritult, kuid on kindlaks tehtud, et AVMid on seotud mitmete geneetiliste sündroomidega, näiteks pärilik

hemorraagiline teleangiiektaasia (Osleri-Willemi-Rendu sündroom), epidermaalsete neevuste (sünnimärkide) sündroom (Solomoni sündroom), Parkes Weberi sündroom jt. AVMe diagnoositakse võrdselt mõlemast soost patsientidel (4).

AVMide kliinilise kulu kirjeldamisel kasutatakse Schobingeri klassifikatsiooni (5). Esimeses staadiumis jäävad AVMid väikeste mõõtmete tõttu asümptomaatiliseks. Latentne staadium võib kesta aastaid. Teises staadiumis toimub AVMide ekspansiivne kasv. AVMide kasvu võivad soodustada puberteedi ajal toimuvad hormonaalsed muutused, lisaks traumad ja infektsioonid. Uuringus, kus osales 272 ekstrakraniaalse AVMiga last, täheldati 82%-l juhtudest nende progresseerumist enne täiskasvanuiga (6). Kolmandas staadiumis on täheldatud destruktiivseid muutusi: pindmiste AVMide korral tekib naha haavandumine, veritsused ja valu. Hiljem võivad lisanduda infektsioonid. Neljandas staadiumis kujuneb dekompensatsioon. Nimelt suure šunteeritava vere mahu tõttu tõuseb vasaku vatsakese eelkoormus ja võib tekkida suure minutimahuga südamepuudulikkus (5).

Vaskulaarsete malformatsioonide kahtluse korral on esmaseks uurimismeetodiks ultraheliuuring (UH), mis võimaldab määrata AVMi lokalisatsiooni ja suurust. Doppleri ultraheliuuringul saab hinnata malformatsiooni toitvaid ja drenivaid veresooni ning arteriovenoosseid šunte. Magnetresonantstomograafia (MRT) abil saab määrata täpsemalt AVMi struktuuri ja lokalisatsiooni kõrval asetsevate elundite suhtes ning planeerida edasist ravi. Kompuutertomograafia (KT) on kasutusel luusiseste haiguslike muutuste moodustiste hindamisel ja erakorraliste patsientide uurimisel. Samas jääb kuldseks standardiks vaskulaarsete malformatsioonide selgitamisel digitaalsubtraktsioonangiograafia (DSA). Nimelt võimaldab DSA kateteriseerida selektiivselt moodustise toitartereid ja teha endovaskulaarseid raviprotseduure (7). AVMide valikraviks on toitvate arterite embolisatsioon koilide, polüvinüülalkoholi osakeste või tsüanoakrüülüümi abil. Preoperatiivset embolisatsiooni kasutatakse ka enne AVMi toitvate arterite kirurgilist ligeerimist ja klipsimist (8).

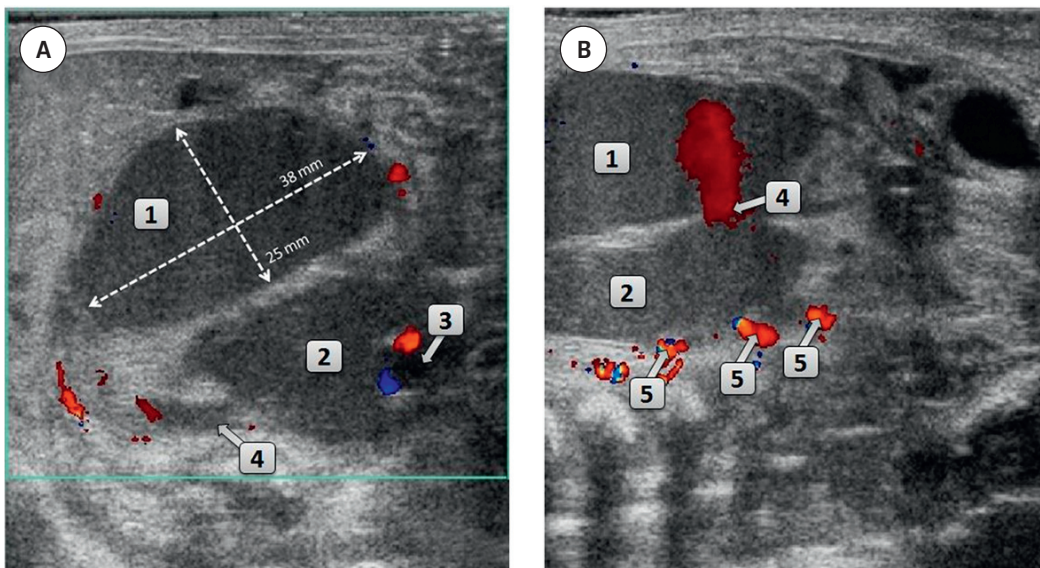
## HAIGUSJUHT

23aastane esmasünnitaja pöördus 28. rasedusnädalal günekoloogi konsultatsioonile, kaevates looteliigutuste vähenemist ja pinget kõhus viimase 4–5 päeva jooksul. Diagnoositi

hüdrops ja polühüdramnion. UH-uuringul esines nabaarteris verevoolu II–III klass (diasoolne verevool oli vähenenud, kohati puudus). Loote düstressi tõttu tehti erakorraline keisrilõige. Sündis tütarlaps gestatsioonivanusega 28 nädalat ja 1 päev ning ta kaalus 1355 g. Apgari hinded olid 4/5/6 palli.

Hingamispuudulikkuse tõttu vastsündinu intubeeriti ja manustati intratracheaalselt surfaktanti. Lisaks alustati glükoosilahuse infusiooni ja dobutamiinravi hemodünaamika toetamiseks. Esimesel elutunnil võetud vereanalüüsides esines aneemia, trombotsütopeenia ja laktaadi taseme suurenemine. Arteriaalse vere gaaside analüüsil ilmnes metaboolne atsidoos: pH 7,29; BE (*base excess*) -5; pCO<sub>2</sub> 44 mm Hg. Aneemia ja trombotsütopeenia korrigeerimisega hemodünaamika ei stabiliseerunud, mistõttu alustati adrenaliini infusiooni.

Neljandal elutunnil teostatud ehhoardiograafilises (EhhoKG) uuringus olid südame paremad õõned dilateerunud, vasakutest õõntest suuremad. Vasaku vatsakese suurus ja kontraktiilse funktsiooni näitajad olid normi piirides: fraktsionaalne lühenemine (*fractional shortening*, FS) 29%, väljutusfraktsioon (*ejection fraction*, EF) 60%. Paremas vatsakeses esines suprasüsteemne süstoolne vererõhk kuni 68 mm Hg ning arterioosjuhas paremalt vasakule verevool. Seejärel tehtud kõhukoopa UH-uuringus



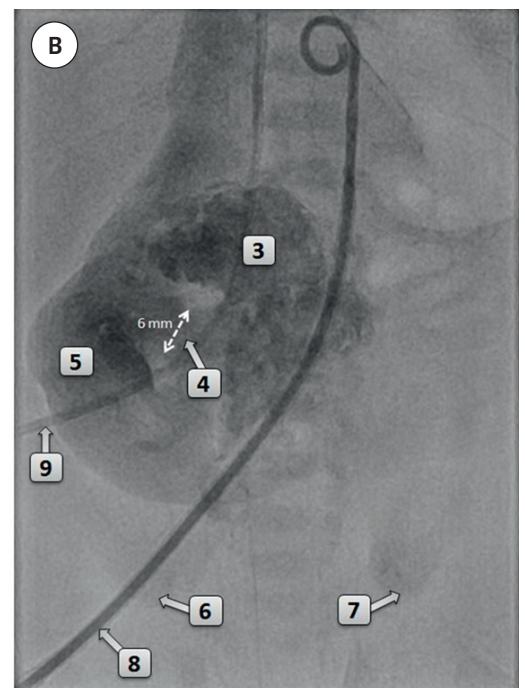
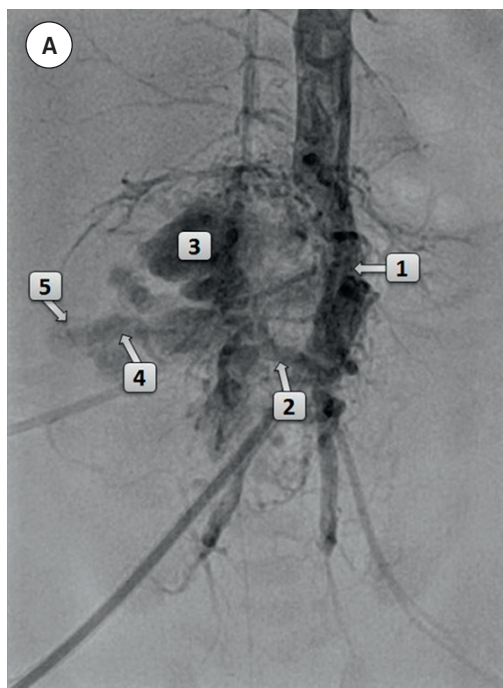
**Pildid 1A ja 1B.** Ultraheliuuring kõhukoopast 4. elutunnil: aksiaallõik (A), sagitaallõik (B). Arteriovenoosne malformatsioon (AVM) paikneb kõhuaordi ja alumise õõnesveeni vahel. Alumine õõnesveen on aneurüsmaatilisel laienenud, mõõtmetega 25 x 38 mm. Tähistused: 1 – alumine õõnesveen; 2 – AVM; 3 – aort; 4 – ühendussoon AVMi ja alumise õõnesveeni vahel; 5 – AVMi toitesooneid.

visualiseerus alumine õõnesveen, mis oli alates maksa alumisest nurgast kuni neeruväratini laienenud, mõõtmetega 25 x 38 mm (vt pilt 1A ja 1B). Laienenud alumise õõnesveeni ja aordi vahel paiknes 28 x 14 mm suurune ebaühtlase struktuuriga vaskulariseeritud lisamass. UH-uuringul ilmnisid lisamassis signaalivabad alad, mis viitasid trombimasside olemasolule. Jäi mulje, et lisamass on ühenduses alumise õõnesveeniga. Kõhuaort oli normaalse laiusega. Neeruarterites esines monofaasiline verevool vähenenud süstoolse tippkiirusega, mis viitas vargussündroomile.

Vaskulaarse lisastruktuuri etioloogia täpsustamiseks ja toitarterite võimalikuks sulgemiseks tehti 18. elutunnil intravenoosne DSA (iDSA). Kesk- ja alakõhus paiknes kuni 3 cm läbimõõduga vaskulaarne moodustus (vt pilt 2A ja 2B), mis dislotseeris kõhuaorti vasakule. Viimane oli ühenduses kolme parempoolse lumbaal-toitarteriga ja dreneerus 6 mm laiuse vaskulaarse kanali kaudu alumisse õõnesveeni. Neeruarterid olid raskesti eristatavad, kuid neerude

parenhüümi joonis oli alakõhus aimatav. Niudearterite kontrasteerumine oli väga aeglane. Protseduuri käigus viidi kateeter IV ja V lumbaalarterisse nende okluseerimiseks: IV lumbaalarterisse sisestati 1 koil, V lumbaalarterisse 2 koili. Embolisatsiooni järel vähenes oluliselt vere juurdevool moodustisse IV ja V lumbaalarteri kaudu. Haigusliku muutuse ülemise pooluse okluseerimiseks süstiti III lumbaalarteri kaudu N-butüül-tsüanoakrülaadi ja lipiidooli segu.

iDSA järel täheldati EhhoKG-l parema koja mõõtmete vähenemist, kuid vasaku vatsakese kontraktilne funktsioon oli halvenenud: FS 24%, EF 52%. Probleemiks kujunesid vereringe ja ventilatsiooni destabiliseerumise perioodid, kus atsidoos oluliselt süvenes: pH 6,9; BE < -20 mmol/l, laktaat > 20 mmol/l. Kuna kopsude konventsiionaalse ventilatsiooniga piisavat oksügenatsiooni saavutada ei õnnestunud, alustati kõrge sagedusega ostsilleeruvat ventilatsiooni. Metaboolse atsidoosi korrigeerimiseks manustati korduvalt THAMi (tris-hüdroksüaminometaan) booluseid,



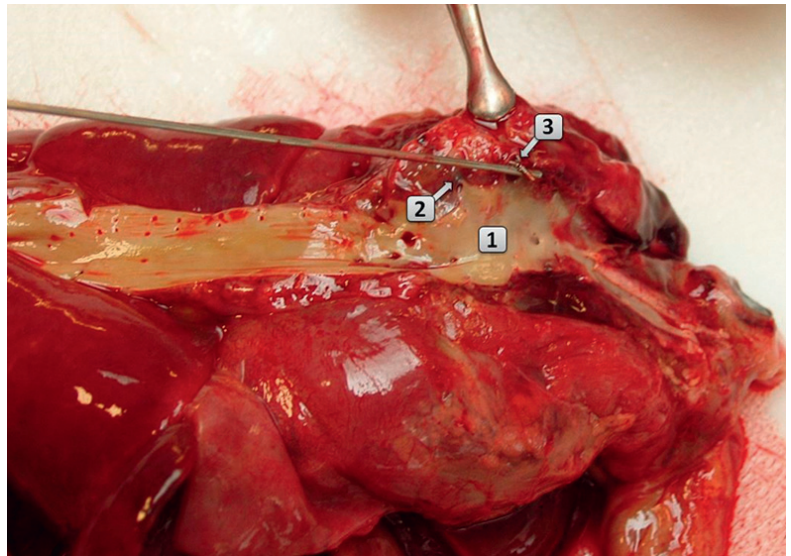
**Pildid 2A ja 2B.** Aortograafia 20. elutunnil. Aort on arteriovenoosse malformatsiooni (AVMi) poolt vasakule lükatud. AVM on ühenduses aordiga 3 lumbaalarteri kaudu. Tuleb nähtavale 6 mm laiune ühendussoon AVMi ja alumise õõnesveeni vahel. Neeruarterid on raskesti eristatavad. Neerude alapoolustes ilmestub nõrk kontrasteerumine. Tähistused: 1 – kõhuaort; 2 – ühendussoon aordi ja AVMi vahel; 3 – AVM; 4 – ühendussoon AVMi ja alumise õõnesveeni vahel; 5 – alumine õõnesveen; 6 – parema neeru alapoolus; 7 – vasaku neeru alapoolus; 8 – parema reiearteri kaudu sisestatud kateeter, mille ots on kõhuaordis; 9 – nabaveeni kaudu sisestatud kateeter, mille ots on alumises õõnesveenis.

mille foonil pH-väärtus suurenes: pH 7,25; BE -14. Samas laktaadi tase ei muutunud ning oksügenatsioonihäire süvenes. Diurees furosemiidi foonil esialgu püsis, seejärel lakkas. Vastsündinu suri 85. elutunnil.

Lahangul leiti IV lumbaalarterist 1 koil, V lumbaalarterist leiti 2 koili (vt pilt 3). Koilitud lumbaalarteritesse sondi sisestades jõuti tsüstjasse moodustisse mõõtmega 4 x 3,5 x 3,5 cm (vt pilt 4A ja 4B), mis maksa servast 3 cm võrra kaudaalsemal haaras endasse ka alumise õõnesveeni. Histoloogilisel uuringul selgus, et haiguslik muutus koosnes erineva suurusega vaskulaarsetest piludest, mille valendikud olid täidetud rohke verega. Pilude seinad olid erineva paksusega, neis esines rakutihe komponent, milles olid hüperkroomse tuumaga väikesed monomorfsed rakud, mitooside esile ei tulnud. Lisaks määrati mitmeid immunohistokeemilisi markereid: vimentiin, CD34 ja CD99 olid haiguslikus moodustises positiivsed; SMA, S100, CD68, panCK, kromogranin ja sünaptofusiin olid negatiivsed. Arvestades histoloogilist ja immunohistokeemilist leidu, jõuti järeldusele, et tegemist on AVMiga, milles esinevad rakutihedamad primitiivsemad alad.

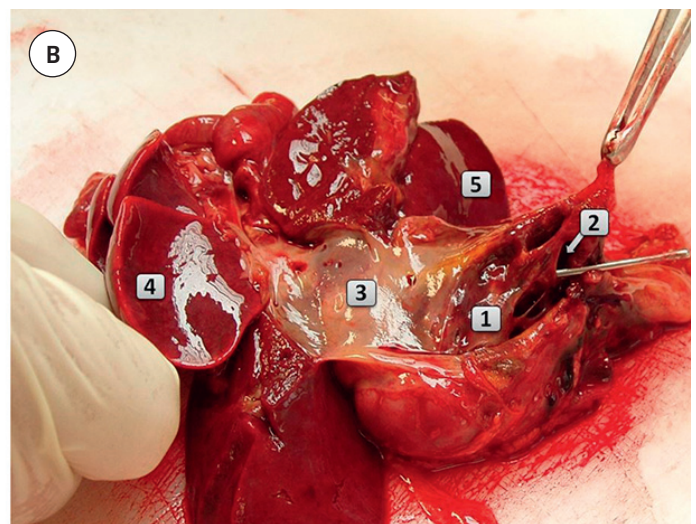
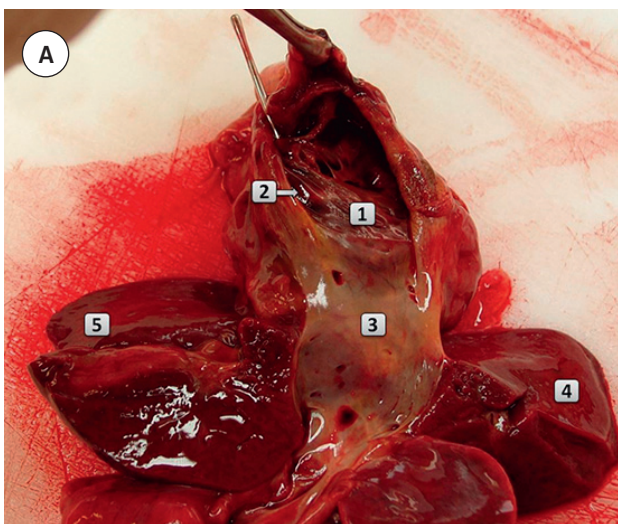
## ARUTELU

Meile teadaolevatel andmetel ei ole varem kirjeldatud AVMide emboliseerimist väga väikese sünnikaaluga vastsündinutel. Thukaram ja kaasautorid on avaldanud



**Pilt 3.** Makroskoopiline pilt kõhuaordist. Aort on lahti lõigatud. IV ja V lumbaalarteri valendikus on näha koilid. V lumbaalarteris jääb koili ots osaliselt aorti. Tähistused: 1 – aort; 2 – koil IV lumbaalarteris; 3 – koil V lumbaalarteris.

haigusjuhu avatud arterioosjuha emboliseerimisest nabaarteri kaudu 1400 g kaalunud enneaegsel vastsündinul (9). Samuti on kirjeldatud südamepuudulikkust põhjustanud *vena Galeni* aneurüsmi emboliseerimist enneaegsel vastsündinul (10). Meie haigusjuhu puhul emboliseeriti AVMiga ühenduses olev parempoolne IV ja V lumbaalarter koilidega. Lisaks teostati AVMi embolisatsioon N-butüül-tsüanoakrülaadi ja lipiodooliga. Embolisatsiooni



**Pildid 4A ja 4B.** Makroskoopilised pildid arteriovenossest malformatsioonist (AVM). Alumine õõnesveen ja maks on lahti lõigatud. Tsüstjatest aladest koosnev AVM haarab 3 cm maksa servast kaudaalsemal endasse alumise õõnesveeni. Tähistused: 1 – AVM; 2 – sond aordi ja AVMi ühendussoones; 3 – alumine õõnesveen; 4 – maksa parem sagar; 5 – maksa vasak sagar.

järel vähenes verevool AVMis oluliselt, kuid AVMi täielikku oklusiooni toitvate arterite suure arvu tõttu saavutada ei õnnestunud.

Retroperitoneaalseid AVMe tuleb eristada paljudest teistest haigusseisunditest, mille korral võib kujuneda äge südamepuudulikkus. Näiteks on 14kuusel tütarlapsel kirjeldatud arteriovenoosset fistulit, mis sai alguse alanevast aordist ja dreneerus ülemisse õõnesveeni (12). On avaldatud mitmeid haigusjuhtude kirjeldusi maksas paiknevate AVMide kohta, mis väljendusid kliiniliselt südamepuudulikkuse ja pulmonaalhüpertensioonina (13). Kirjeldatud on haigusjuhtu, kus 3 kuu vanusel imikul diagnoositi retroperitoneaalne vaskulaarne lisamass kõhuaordi bifurkatsiooni, niudearterite ja alumise õõnesveeni lähedal. Pärast toitvate arterite embolisatsiooni täheldati lisamassi suuruse vähenemist, kuid histoloogilisel uuringul selgus, et tegemist oli diferentseerumata sarkoomiga (11). Seega on erinevate vaskulaarsete anomaaliatega spekter väga lai, mistõttu on mõnedes töodes mõistega „AVM“ tähistatud ka muid vaskulaarseid haiguslikke muutusi, kuigi see ei ole terminoloogiliselt korrektne (11).

AVMi tuleb eristada hemangioomist, mis on kõige sagedasem vaskulaarne tuumor. Hemangioomid sisaldavad lisaks endoteelirakkudega vooderdatud vaskulaarsetele kanalitele ka pehmekoeliseid komponenti. Erinevalt hemangioomidest on AVMidele tavaliselt iseloomulik vähene sidekoe hulk, kuid võib esineda ka atüüpilise struktuuriga moodustisi. Meie patsiendil koosnes AVM peamiselt düsplastilistest vaskulaarsetest kanalitest ning sisaldas ka mõningaid rakutihedamaid primitiivsemaid alasid. Arvestades pehmekoelise komponendi olemasolu, jäi esialgu tuumorikahtlus, kuid AVMi histoloogiline ja immunohistokeemiline analüüs ei näidanud malignuse tunnuseid. Seega ei piisa teatud juhtudel AVMide ja hemangioomide eristamiseks üksnes radioloogilistest uuringutest, vaid on vajalik histoloogiline täpsustus.

Diferentsiaaldiagnostika seisukohalt on olulised ka arteriovenoossed fistulid, mis tekivad enamasti trauma tagajärjel või invasiivse protseduuri tüsistusena ning mille korral tekib tavaliselt üks ühendussoon arteriaalse ja venoosse süsteemi vahel (14). Erinevalt fistulitest esineb AVMide puhul hulgaliselt artereid ja veene ühendavaid atüüpilise struktuuriga veresoone. Meie kirjeldatud patsiendil diagnoositi tõeline

AVM, mis sisaldas suurt düsplastilistest veresoontest koosnevat *nidus*'t.

Pulmonaalhüpertensioon on tähtis prognostiline tegur enneaegsetel vastsündinutel (15). Pulmonaalhüpertensiooni tagajärjel toimub hapnikuvaese vere šuntimine kopsuvereringest suurde vereringesse, mis soodustab hüpokseemia teket. Sagedasemad vastsündinute pulmonaalhüpertensiooni põhjused (nt respiratoorse düstressi sündroom või kopsude hüpoplaasia) on seotud kopsuringe vaskulaarse resistentsuse suurenemisega, kuid AVMide puhul on pulmonaalhüpertensiooni peamine põhjus kopsuringe verevoolu suurenemine (13, 15). Meie kirjeldatud haigusjuhust täheldati EhhoKG-l parema vatsakese dilatatsiooni ja rõhu suurenemist. Lisaks oli jälgitav verevool paremalt vasakule arterioosjuha kaudu. Pulmonaalhüpertensioon soodustas hüpokseemia teket, mis allus vaid osaliselt intensiivravi võtetele.

Sarnaselt käesoleva haigusjuhuga on varem kirjeldatud ajalast vastsündinut, kellel oli pulmonaalhüpertensiooni põhjuseks maksas paiknev AVM. Teostati AVMi endovaskulaarne ravi, misjärel vererõhk kopsuringes normaliseerus (13). Need andmed viitavad pulmonaalhüpertensiooni varase diagnoosimise ja etiopatogeneetilise ravi olulisusele. Tuleb rõhutada, et AVMide korral tuleb olla ettevaatlik lämmastikoksiidi (NO) kasutamisel pulmonaalhüpertensiooni ravis. Vasodilateeriva toime tõttu võib NO täiendavalt suurendada kopsude perfusiooni ja süvendada pulmonaalhüpertensiooni (16). Seega peab AVMist tingitud pulmonaalhüpertensiooni korral ravi olema suunatud arteriovenoossete šuntide sulgemisele, et vähendada kopsude hüperperfusiooni.

Suurte arteriovenoossete šuntide korral võivad AVMid põhjustada mitmeid tüsistusi (4). Meie patsiendi puhul kujunes kõrge minutimahuga südamepuudulikkus, mille progresseerumist soodustas ka pulmonaalhüpertensioon. AVM võib tüsistuda verejooksuga, mille raskusaste võib varieeruda alates vähesest aneemiast kuni hemorraagilise šokini. Verejooksu peamised riskitegurid on kõrge perfusioonirõhk AVMi toitvates arterites, *nidus*'t moodustavate düsplastiliste veresoonte ruptuur ja venoosse drenaaži häired (17). AVMid on seotud vargussündroomiga, kuna arteriovenoosne šuntimine vähendab hapniku viimist distaalsetesse kudedesse ja põhjustab isheemiat (14). Meie

kirjeldatud patsiendil olid neeruarterid DSA ajal raskesti eristatavad. Lisaks oli UH-uuringul süstoolne tippkiirus neeruararterites vähenenud. Seega kutsus arteriovenoosne šuntimine esile neerude hüpopoerfusiooni, mis omakorda põhjustas oliguuriat ja perifeerset tursete suurenemist.

Viimasel aastakümnel on AVMid ravi valikmeetodiks kujunenud endovaskulaarne embolisatsioon. Embolisatsiooni materjalid hõlmavad erinevaid koile, polümeeriosakesi ja N-butüül-tsüanoakrülaati (14). Embolisatsioon on kõige tõhusam väiksema toitearterite arvuga AVMid puhul. Täielik kirurgiline reseksioon annab parima pikaajalise prognoosi, ent see pole alati võimalik. Embolisatsiooni kasutatakse ka enne kirurgilist ravi, et vähendada AVMi suurust ja operatsiooniaegset verejooksu (14).

## KOKKUVÕTE

Retroperitoneaalseid veresoone haaravad AVMid on harva esinevad kaasasündinud anomaaliad. Artiklis kirjeldatud haigusjuht näitas, et juhul kui pulmonaalhüpertensiooniga vastsündinutel ei selgu haiguse põhjus EhhoKG-l, on järgmisteks uurimismeetoditeks kõhu ja aju UH-uuring ning vajadusel DSA. Enneaegsetel vastsündinutel on ravi kiire alustamine eriti oluline, kuna pikaajaline isheemia põhjustab pöördumatuid muutusi elutähtsates elundites ja on seotud suure suremusega. Kui UH-uuringul jääb kahtlus AVMi suhtes, on DSA eelistatud MRT-le, sest lisaks malformatsiooni suuruse ja hemodünaamika hindamisele võimaldab DSA kateteriseerida selektiivselt AVMi toitvaid artereid ja teostada nende oklusiooni. Vaatamata ravivõimaluste paranemisele on magistraalveresoone haaravad AVMid jätkuvalt seotud tüsistuste ja suremuse suure riskiga.

## SUMMARY

### Retroperitoneal arteriovenous malformation – a rare cause of pulmonary hypertension in a premature infant

Maksim Zagura<sup>1</sup>, Heleri Konik<sup>1</sup>, Helgi Padari<sup>2</sup>, Tuuli Metsvaht<sup>2</sup>, Toomas Hermlin<sup>1</sup>, Liis Salumäe<sup>3</sup>, Tiiu Tomberg<sup>4</sup>

Retroperitoneal arteriovenous malformations (AVMs) are rare lesions consisting

of dysplastic vessels, which may produce diverse clinical features. We report a case of a neonate born on the 29th week of gestation, who presented with heart failure, generalized oedema, respiratory dyspnoea and metabolic acidosis. Digital subtraction angiography revealed a large AVM located adjacent to the aorta and the inferior vena cava. Lumbar arteries supplying the AVM were occluded by coils. The AVM was partially embolized using N-butyl cyanoacrylate. Despite the apparently successful embolization procedure, heart failure and respiratory distress progressed. The newborn died on her fourth day of life. We report the first case describing AVM embolization in a very low birth weight preterm infant.

## KIRJANDUS/REFERENCES

- Zagura M, Konik H, Padari H, et al. Retroperitoneal arteriovenous malformation – a rare cause of pulmonary hypertension in a premature infant. *Int J Clin Pediatr* 2015;4:162–5.
- Dasgupta R, Fishman SJ. ISSVA classification. *Semin Pediatr Surg* 2014;23:158–61.
- Chen G, Zheng M, Shu H, et al. Macrophage migration inhibitory factor reduces apoptosis in cerebral arteriovenous malformations. *Neurosci Lett* 2012;508:84–8.
- Nozaki T, Nosaka S, Miyazaki O, et al. Syndromes associated with vascular tumors and malformations: a pictorial review. *Radiographics* 2013;33:175–95.
- Cahill AM, Nijls EL. Pediatric vascular malformations: pathophysiology, diagnosis, and the role of interventional radiology. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2011;34:691–704.
- Liu AS, Mulliken JB, Zurakowski D, Fishman SJ, Greene AK. Extracranial arteriovenous malformations: natural progression and recurrence after treatment. *Plast Reconstr Surg* 2010;125:1185–94.
- Lowe LH, Marchant TC, Rivard DC, Scherbel AJ. Vascular malformations: classification and terminology the radiologist needs to know. *Semin Roentgenol* 2012;47:106–17.
- Visser A, Fitz-John T, Tan ST. Surgical management of arteriovenous malformation. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2011;64:283–91.
- Thukaram R, Suarez WA, Sundararaghavan S. Transcatheter closure of the patent arterial duct using the Flippercoil in a premature infant weighing 1,400 g: a case report. *Catheter Cardiovasc Interv* 2005;66:18–20.
- Aly AM, Garcia CY, von Ritschl R. Successful embolization of a large vein of galen malformation in a premature infant presenting with congestive heart failure and persistent pulmonary hypertension. *AJP Rep* 2012;2:19–22.
- Israel PG, Armstrong BE, Effman EL, Newman GE, Anderson PA. Retroperitoneal arteriovenous malformation, a rare cause of heart failure in infancy: consideration of therapeutic approaches. *Pediatr Cardiol* 1993;14:49–52.
- Soler P, Mehta AV, Garcia OL, Kaiser G, Tamer D. Congenital systemic arteriovenous fistula between the descending aorta, azygos vein, and superior vena cava. *Chest* 1981;80:647–9.
- Alexander CP, Sood BG, Zilberman MV, Becker C, Bedard MP. Congenital hepatic arteriovenous malformation: an unusual cause of neonatal persistent pulmonary hypertension. *J Perinatol* 2006;26:316–8.
- Mulligan PR, Prajapati HJ, Martin LG, Patel TH. Vascular anomalies: classification, imaging characteristics and implications for interventional radiology treatment approaches. *Br J Radiol* 2014;87:20130392.
- Puthiyachirakkal M, Mhanna MJ. Pathophysiology, management and outcome of persistent pulmonary hypertension of the newborn: a clinical review. *Front Pediatr* 2013;1:23–8.
- Dhillon R. The management of neonatal pulmonary hypertension. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed* 2012;97:223–8.
- Hademenois GJ, Massoud TF. Risk of intracranial arteriovenous malformation rupture due to venous drainage impairment. *Stroke* 1996;27:1072–83.

<sup>1</sup> Radiology Clinic, Tartu University Hospital, Tartu, Estonia,  
<sup>2</sup> Anaesthesiology and Intensive Care Clinic, Tartu University Hospital, Tartu, Estonia,  
<sup>3</sup> Department of Clinical Pathology/Cytology, Karolinska University Hospital, Stockholm, Sweden

Correspondence to: Maksim Zagura [maksimzagura@gmail.com](mailto:maksimzagura@gmail.com)

**Keywords:** arteriovenous malformation, embolization, preterm infant, pulmonary hypertension, hydrops