

Калинин М.Н.^{1,2}, Хасанова Д.Р.^{1,2}, Ибатуллин М.М.^{1,2}, Курадо А.Т.², Яушева Л.М.^{1,2}, Рахимов И.Ш.³

¹Кафедра неврологии и нейрохирургии факультета повышения квалификации и профессиональной переподготовки специалистов ГБОУ ВПО «Казанский государственный медицинский университет» Минздрава России Казань, Россия;

²ГАУЗ «Межрегиональный клинко-диагностический центр», Казань, Россия;

³кафедра биологии и экологии Елабужского института (филиал) ФГАОУ ВПО «Казанский (Приволжский) Федеральный университет», Елабуга, Россия

Необычная причина инсульта: церебральная дуральная артериовенозная фистула

На основе данных литературы и собственного клинического опыта приведены современные представления об этиологии, патогенезе, классификации, клинике и способах лечения одной из необычных причин инсульта — церебральной дуральной артериовенозной фистулы (ДАВФ). Описан больной молодого возраста с лобарной локализацией очага, комбинацией ишемического и геморрагического инсульта. Указано, что раннее появление и персистенция значительного отека должны настораживать в плане поиска ДАВФ или иной венозной патологии. Сделан акцент на ведущей роли протоколов мультимодальной визуализации в ранней диагностике заболевания. На сегодняшний день церебральная селективная ангиография внутренних и наружных сонных и позвоночных артерий — «золотой стандарт» диагностики и классификации ДАВФ.

Ключевые слова: дуральная артериовенозная фистула; инсульт; внутрочерепное кровоизлияние; компьютерная томография; магнитно-резонансная томография; цифровая селективная ангиография.

Контакты: Дина Рустемовна Хасанова; dhasanova@mail.ru

Для ссылки: Калинин МН, Хасанова ДР, Ибатуллин ММ и др. Необычная причина инсульта: церебральная дуральная артериовенозная фистула. Неврология, нейропсихиатрия, психосоматика. 2015;7(4):37–41.

The unusual cause of stroke: Cerebral dural arteriovenous fistula

Kalinin M.N.^{1,2}, Khasanova D.R.^{1,2}, Ibatullin M.M.^{1,2}, Kurado A.T.², Yausheva L.M.^{1,2}, Rakhimov I.Sh.³

¹Department of Neurology and Neurosurgery, Faculty for Advanced Training and Occupational Retraining of Specialists, Kazan State Medical University, Ministry of Health of Russia, Kazan, Russia; ²Interregional Clinical and Diagnostic Center, Kazan, Russia;

³Department of Biology and Ecology, Elabuga Institute (Branch), Kazan (Volga) Federal University, Elabuga, Russia

Based on the data available in the literature and their own experience, the authors give current views on the etiology, pathogenesis, classification, clinical presentations, and treatments of cerebral dural arteriovenous fistula (DAVF), one of the unusual causes of stroke. The paper describes a young male patient with the lobar localization of the focus, a concurrence of ischemic stroke and hemorrhagic stroke. It is stated that the early emergence and persistence of a considerable focus should alert the physician to the possibility of DAVF or another venous anomaly. An emphasis is laid on the leading role of multimodal imaging protocols in the early diagnosis of the disease. Selective cerebral angiography of the internal and external carotid and vertebral arteries is today the gold standard for the diagnosis and classification of DAVF.

Keywords: dural arteriovenous fistula; stroke; intracranial hemorrhage; computed tomography; magnetic resonance imaging; selective digital angiography.

Contact: Dina Rustemovna Khasanova; dhasanova@mail.ru

For reference: Kalinin MN, Khasanova DR, Ibatullin MM, et al. The unusual cause of stroke: Cerebral dural arteriovenous fistula. *Neurologiya, neiropsikhiatriya, psichosomatika* = Neurology, neuropsychiatry, psychosomatics. 2015;7(4):37–41.

DOI: <http://dx.doi.org/10.14412/2074-2711-2015-4-37-41>

У пациентов с острым нарушением мозгового кровообращения без значимых факторов риска всегда трудно определить причину заболевания, особенно если имеющиеся рутинные тесты не выявляют какого-либо этиологического фактора. В таких случаях, как правило, сложно выработать правильную стратегию вторичной профилактики, что ведет к высокой частоте рецидивов, стойкой утрате трудоспособности и смерти. Осведомленность о необычных причинах инсульта важна для дифференциальной диагностики и планирования дальнейшего диагностического поиска. Одной из таких причин является дуральная артериовенозная фистула (ДАВФ) — заболевание, диагностика которого базируется исключительно на методах нейровизуализации.

Церебральная ДАВФ — это патологический шунт между артериями твердой мозговой оболочки (ТМО) и венозными синусами, менингеальными или кортикальными венами. Среди всех интракраниальных артериовенозных мальформаций (АВМ) ДАВФ встречаются в 10–15% случаев, хотя точная ее частота неизвестна — в большинстве наблюдений заболевание протекает бессимптомно. Фистулы следует отличать от паренхиматозных или пиальных АВМ по наличию питающей артерии от ТМО и отсутствию сосудистого клубка в паренхиме мозга. Большинство ДАВФ манифестируют в зрелом возрасте и располагаются в поперечном, сигмовидном или кавернозном синусах. Дебют ДАВФ с агрессивных неврологических симптомов более характе-

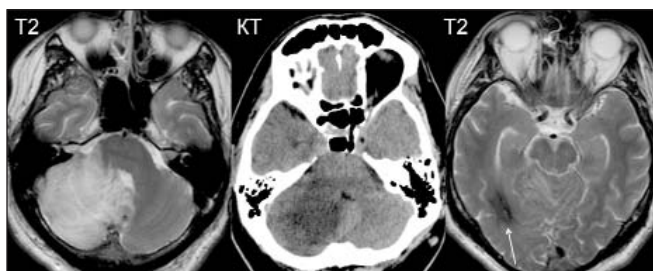


Рис. 1. Мультимодальная нейровизуализация. Выраженный отек (сигнал гиперинтенсивный на T2, гиподенсивный на бесконтрастной КТ) правого полушария мозжечка, средней мозжечковой ножки и частично моста с компрессией IV желудочка: признаки венозного инфаркта. Отложения гемосидерина (стрелка) в правой затылочной доле: следы старой внутримозговой гематомы. На бесконтрастной КТ гемосидерин не виден

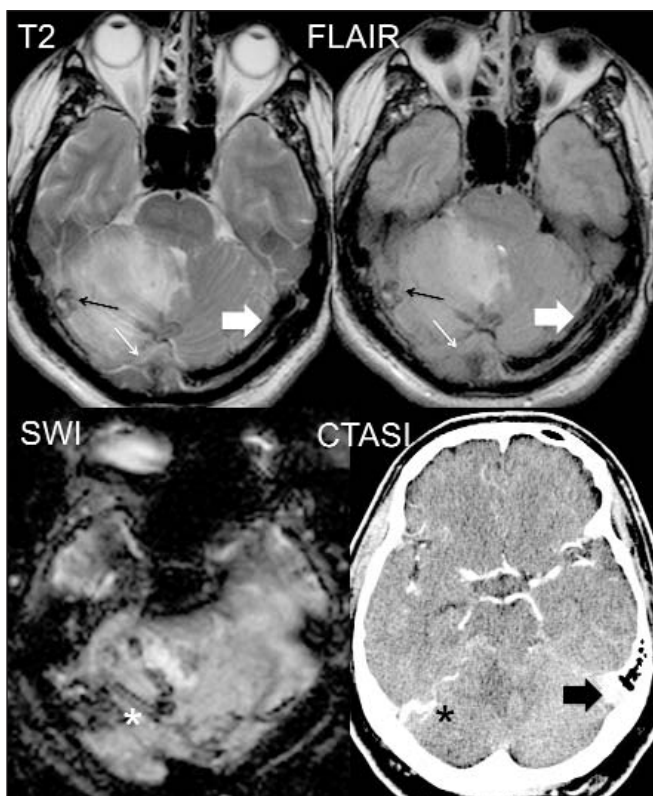


Рис. 2. Мультимодальная нейровизуализация. На T2 и FLAIR видны кластеры пустот потока (черная тонкая стрелка) в области правого поперечного синуса, которые на SWI и исходных сканах КТА (CTASI) соответствуют патологически расширенным и извитым венам, отходящим от ТМО и идущим в паренхиму мозжечка (звездочка) — косвенные признаки фистулы. Левый поперечный синус хорошо контрастируется на CTASI (черная широкая стрелка), а на T2 и FLAIR виден как феномен пустоты потока (белая широкая стрелка): нормальный синус. Правый поперечный синус не контрастируется на CTASI, а на T2 и FLAIR феномен пустоты потока отсутствует (белая тонкая стрелка): косвенные признаки тромбоза

рен для мужчин. У детей ДАВФ обычно комплексные, часто имеют питающие артерии с обеих сторон, возникают в области венозного стока, верхнего сагиттального синуса или больших венозных лакун. Фистулы также могут формироваться на уровне спинного мозга, в таких случаях говорят о спинальных ДАВФ [1].

Этиология и патогенез

Причина ДАВФ в большинстве случаев неизвестна. Предрасполагающими факторами могут служить краниотомия, травмы головы, инсульт, инфекции уха и околоносовых пазух, гормональный дисбаланс (беременность, климакс), опухоли (менингеомы). Тромбозу венозных синусов придается ведущее значение в развитии фистулы. В ответ на повышение локального венозного давления открываются и увеличиваются физиологические шунты между менингеальными артериями и венозными синусами, которые затем становятся патологическими. Венозная гипертензия также снижает перфузию мозга и ускоряет патологический неоваскулогенез путем высвобождения ангиогенных факторов роста. Гиперкоагулопатии, в том числе наследственные (дефицит антитромбина, протеина С и S), ведут к венозному тромбозу и последующему появлению ДАВФ. У детей фистулы обычно врожденные либо возникают под влиянием родовой травмы, инфекции, внутриутробного венозного тромбоза или материнских гормонов [2, 3].

В сформировавшейся ДАВФ артериальная кровь поступает в венозный синус под высоким давлением, что вызывает ремоделирование его стенок, пролиферацию интимы и отложение гиалина. С течением времени синус тромбируется, и кровь начинает дренироваться в кортикальные вены, которые затем также подвергаются ремоделированию и тромбозу. Венозный застой приводит к развитию негеморрагического неврологического дефицита (НГНД), а разрывы легкоранимых вен — к внутричерепным кровоизлияниям (ВЧК) [4].

Классификация и течение

Паттерн венозного дренирования определяет тяжесть симптомов и лежит в основе классификации ДАВФ (табл. 1, 2) [5, 6].

Отсутствие дренирования в кортикальные вены (тип I по Borden, типы I, IIa по Cognard) является благоприятным симптомом и ассоциируется с доброкачественным течением. Эти пациенты, как правило, выявляются случайно либо попадают к врачам с таким симптомом, как усиленное дренирование вен ТМО (пульсирующий шум в ушах или голове, экзофтальм, головная боль и др.). Риск ВЧК при этом очень низкий [7].

Таблица 1. Классификация ДАВФ по Borden

Тип	Место венозного дренирования	Дренирование в кортикальные вены
Доброкачественные I	Синус или менингеальная вена	Нет
Агрессивные II III	Синус Кортикальные вены	Да Да

КЛИНИЧЕСКИЕ НАБЛЮДЕНИЯ

Таблица 2. Классификация ДАВФ по Cognard

Тип	Место венозного дренирования	Паттерн кровотока в синусе	Дренирование в кортикальные вены
Доброкачественные			
I	Синус	Антеградный	Нет
IIa	Синус	Ретроградный	Нет
Агрессивные			
IIb	Синус	Антеградный	Да
IIIa+b	Синус	Ретроградный	Да
III	Кортикальные вены		Да
IV	Кортикальные вены		Да + эктазия вен
V	Кортикальные вены со спинальным перимедуллярным дренированием		Да

Дренирование в кортикальные вены (типы II и III по Borden, типы IIb–V по Cognard) считается признаком агрессивных ДАВФ. При этом летальность достигает 10,4% в год, а риск ВЧК и НГНД – 8,1 и 6,9% в год соответственно. ДАВФ являются динамичными по своей природе. Доброкачественные фистулы в 2% случаев могут стать агрессивными при развитии венозного стеноза, тромбоза или усилении притока артериальной крови. Описаны также случаи спонтанного тромбоза/самоизлечения ДАВФ. Любые изменения симптомов могут отражать экзacerbацию паттерна венозного дренирования и поэтому требуют скорейшего обследования [8, 9].

Клиническая картина

Возраст большинства пациентов с ДАВФ – 50–60 лет. Симптомы обусловлены локализацией фистулы и паттерном венозного дренирования. Пульсирующий шум в ушах или голове – частый симптом, обусловленный повышением кровотока в венозном синусе, особенно в поперечном или сигмовидном. При ДАВФ в кавернозном синусе возникают офтальмоплегия, птоз, хемоз, ретробульбарная боль, снижение остроты зрения.

Тяжелые проявления ДАВФ включают ВЧК (внутри-мозговая гематома, субарахноидальное кровоизлияние) и НГНД (эпилептические припадки, паркинсонизм, мозжечковые симптомы, апатия, нарушения черепной иннервации, тригеминальная невралгия). Некоторые симптомы, например когнитивные нарушения, могут стать менее выраженными после лечения. Геморрагические проявления наиболее часто встречаются при агрессивных типах ДАВФ, поэтому необъяснимое субарахноидальное или лобарное кровоизлияние требует дифференциальной диагностики с ДАВФ [1, 4].

Диагностика

Начальная нейровизуализационная оценка включает компьютерную (КТ) и магнитно-резонансную (МРТ) томографию. Бесконтрастная КТ ограничена выявлением лишь острого ВЧК и отека вследствие венозного застоя. МРТ является более информативным методом, так как позволяет обнаружить расширенные сосуды, венозные карманы, усиленную васкуляризацию и симптомы венозной гипертензии при агрессивных ДАВФ: гиперинтенсивность белого вещества, ВЧК, венозный инфаркт (рис. 1). Эти находки варьируют при различных типах ДАВФ. Так, при фистулах I и II типов можно обнаружить кластеры пустот потока и набухшие вены, в то же время при агрессивных II и III типах с

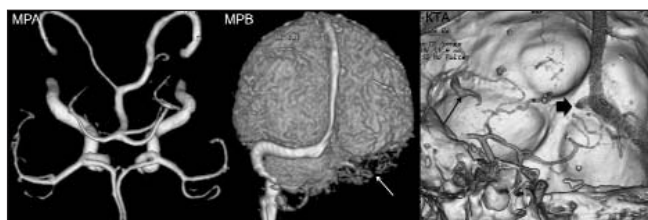


Рис. 3. Визуализация артерий, синусов и фистулы (3D-реконструкция). МРА – магистральные мозговые артерии без патологии, гипоплазия левой позвоночной артерии. МР-венография – тромбоз правых поперечного и сигмовидного синусов и внутренней яремной вены. Кровенаполнение правого полушария мозжечка (стрелка) значительно снижено. КТА – ДАВФ с дренированием в мозжечковые вены (тонкая стрелка) и тромбозом правых поперечного и сигмовидного синусов (широкая стрелка)



Рис. 4. ЦСА правой наружной сонной артерии. Артериальная фаза, вид сбоку: в области правого поперечного синуса хорошо визуализируется ДАВФ (звездочка), получающая питание из средней менингеальной (стрелка А) и затылочной (стрелка Б) артерий. Дренирование крови в расширенные и извитые мозжечковые вены (стрелка В). Венозная фаза, вид спереди: дренирование в извитые и расширенные мозжечковые вены (белые тонкие стрелки), впадающие в левый поперечный синус (белая широкая стрелка). Тромбоз правых поперечного и сигмовидного синусов

большой вероятностью можно встретить расширенные сосуды, выраженное сосудистое усиление или геморрагии. Градиентные режимы SWI/SWAN наиболее чувствительны при выявлении хронических геморрагий и патологически расширенных вен (рис. 2).

Любые подозрительные кластеры пустот потока вокруг венозного синуса должны быть дополнительно оценены с помощью КТ- или МР-ангиографии (КТА, МРА), КТ- или МР-венографии либо цифровой субстракцион-

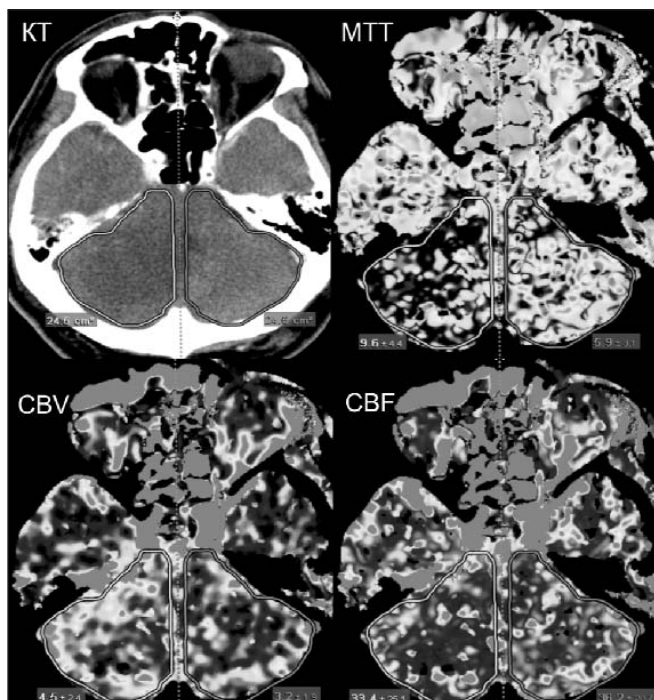


Рис. 5. КТ-перфузия. Гиподенсивный на КТ очаг в правом полушарии мозжечка находится в состоянии гипоперфузии (удлинено среднее время транзита МТТ, снижена скорость мозгового кровотока СВФ). Объем мозгового кровотока СВФ повышен. Данные согласуются с уже имеющимися и свидетельствуют о венозном инфаркте, застое и отеке

ной ангиографии (ЦСА; рис. 3, 4). КТА особенно полезна на этапе планирования лечения, так как позволяет точно определить анатомию ДАВФ по отношению к окружающему мозгу и костям черепа. Новые методики визуализации сосудов, например 4D КТА на 320-срезовом КТ-сканере либо МРА с применением временного разрешения (TWIST), являются многообещающими инструментами для скрининга и наблюдения в динамике за пациентами с ДАВФ. Однако на сегодняшний день самым точным методом выявления и классификации ДАВФ остается ЦСА [10, 11].

Лечение

Терапия ДАВФ направлена, как правило, на полную элиминацию фистулы. Применяют эндоваскулярные, нейрохирургические, стереотаксические радиохирургические и консервативные методы лечения. Эндоваскулярные методики (трансартериальная, трансвензная или комбинированная эмболизация) являются первой линией терапии. Нейрохирургическое пособие (прямая интраоперационная эмболизация менингеальных артерий или вен, резекция патологической ТМО и др.) обычно показано при неэффективности эндоваскулярных вмешательств или противопоказаниях к ним. Радиохирургические методы пока не нашли широкого применения и обычно используются при доброкачественных ДАВФ. Решение о выборе способа терапии принимается у каждого больного индивидуально совместно с рентгеноангиохирургом, нейрохирургом, невро-

логом и лучевым терапевтом. Агрессивные ДАВФ требуют раннего лечения для предотвращения ВЧК и НГНД. Консервативная терапия показана при доброкачественных фистулах [2, 3, 4, 6–8, 12].

Приводим клиническое наблюдение.

Пациент Г., 47 лет, поступил в клинику для дальнейшего обследования с жалобами на головокружение, шум в голове, снижение зрения на левый глаз, боль в правом плечевом суставе, неловкость в правой руке с ограничением движений.

Считает себя больным около 10 мес: появилась приступообразная головная боль с тошнотой, рвотой, головокружением и шумом в голове. Выполнены два КТ-исследования головного мозга, изменений не обнаружено. В последующие 3 мес наблюдалась 3 эпизода кратковременной потери сознания. На 4-м месяце после появления симптомов отметил ухудшение состояния: нарушилась речь, появилась слабость в правых конечностях. По данным МРТ головного мозга – внутримозговая гематома в правой затылочной доле, ишемия правого полушария мозжечка. Консервативное лечение проводилось в условиях первичного сосудистого центра, после чего отмечалось некоторое улучшение. За 3 мес до развития симптомов перенес травму головы. На протяжении 7 лет имеет инвалидность по поводу тромбоза нижних конечностей.

В неврологическом статусе при поступлении выявлены правосторонний гемипарез, грубый мозжечковый синдром справа, левосторонняя гомонимная гемианопсия. На глазном дне – умеренные застойные явления диска зрительного нерва с обеих сторон.

Пациенту проведена мультимодальная нейровизуализация и ЦСА, (см. рис. 1–5)¹. В области правого поперечного синуса обнаружена агрессивная ДАВФ III типа по Borden, IV типа по Cognard. Фистулу ипсилатерально питают ветви средней менингеальной и затылочной артерий, относящиеся к бассейну наружной сонной артерии. Правые поперечный и сигмовидный синусы окклюзированы. Из фистулы кровь дренируется в извитые и расширенные мозжечковые вены, которые впадают в левый поперечный синус. Агрессивность ДАВФ манифестировала осложнениями: лобарной гематомой (правая затылочная доля), венозным инфарктом правого полушария мозжечка, внутричерепной гипертензией. Клинические проявления и агрессивность ДАВФ указывали на то, что у пациента имеется высокий риск рецидива ВЧК. С учетом доступа к питающим фистулу артериям показано эндоваскулярное вмешательство. Возможные факторы, способствовавшие возникновению ДАВФ: предшествующая травма головы и хронический тромбоз нижних конечностей.

Таким образом, лобарная локализация очага, молодой возраст пациента, комбинация ишемического и геморрагического инсульта, раннее появление и персистенция значительного отека должны настораживать в отношении поиска ДАВФ или иной венозной патологии. Скрининг на наличие венозной патологии в головном мозге должен включать МРА, МР-венографию, градиентные режимы (SWI/SWAN, T2*-GRE), при необходимости КТ-ангиографию с исследованием СТАСИ. Для дифференциального диагноза с опухолями всегда следует проводить КТ- или МР-перфузию. На сегодняшний день ЦСА внутренних и наружных сонных и позвоночных артерий – «золотой стандарт» диагностики и классификации ДАВФ.

¹ Цветные рисунки представлены в статье, размещенной на сайте журнала: nnp.ima-press.net

1. Chaichana KL, Coon AL, Tamargo RJ, et al. Dural arteriovenous fistulas: epidemiology and clinical presentation. *Neurosurg Clin N Am*. 2012 Jan;23(1):7-13. doi: 10.1016/j.nec.2011.09.001. Epub 2011 Oct 21.
2. Gandhi D, Chen J, Pearl M, et al. Intracranial dural arteriovenous fistulas: classification, imaging findings, and treatment. *AJNR Am J Neuroradiol*. 2012 Jun;33(6):1007-13. doi: 10.3174/ajnr.A2798. Epub 2012 Jan 12.
3. Haccin-Bey L, Konstas AA, Pile-Spellman J. Natural history, current concepts, classification, factors impacting endovascular therapy, and pathophysiology of cerebral and spinal dural arteriovenous fistulas. *Clin Neurol Neurosurg*. 2014 Jun;121:64-75. doi: 10.1016/j.clineuro.2014.01.018. Epub 2014 Jan 31.
4. Gupta A, Periakaruppan AA. Intracranial dural arteriovenous fistulas: A Review. *Indian J Radiol Imaging*. 2009 Feb;19(1):43-8. doi: 10.4103/0971-3026.45344.
5. Gomez J, Amin AG, Gregg L, et al. Classification schemes of cranial dural arteriovenous fistulas. *Neurosurg Clin N Am*. 2012 Jan;23(1):55-62. doi: 10.1016/j.nec.2011.09.003.
6. Lv X, Jiang C, Li Y, et al. Transverse-sigmoid sinus dural arteriovenous fistulae. *World Neurosurg*. 2010 Aug-Sep;74(2-3):297-305. doi: 10.1016/j.wneu.2010.02.063.
7. Davies MA, Saleh J, Ter Brugge K, et al. The natural history and management of intracranial dural arteriovenous fistulae. Part 1: benign lesions. *Interv Neuroradiol*. 1997 Dec 20;3(4):295-302. Epub 2001 May 15.
8. Davies MA, Ter Brugge K, Willinsky R, et al. The natural history and management of intracranial dural arteriovenous fistulae. Part 2: aggressive lesions. *Interv Neuroradiol*. 1997 Dec 20;3(4):303-11. Epub 2001 May 15.
9. van Dijk JM, terBrugge KG, Willinsky RA, et al. Clinical course of cranial dural arteriovenous fistulas with long-term persistent cortical venous reflux. *Stroke*. 2002 May;33(5):1233-6.
10. Lee SK, Willinsky RA, Montanera W, et al. MR imaging of dural arteriovenous fistulas draining into cerebellar cortical veins. *AJNR Am J Neuroradiol*. 2003 Sep;24(8):1602-6.
11. Mossa-Basha M, Chen J, Gandhi D. Imaging of cerebral arteriovenous malformations and dural arteriovenous fistulas. *Neurosurg Clin N Am*. 2012 Jan;23(1):27-42. doi: 10.1016/j.nec.2011.09.007.
12. Paul AR, Colby GP, Huang J, et al. Selection of treatment modalities or observation of dural arteriovenous fistulas. *Neurosurg Clin N Am*. 2012 Jan;23(1):77-85. doi: 10.1016/j.nec.2011.09.004. Epub 2011 Oct 21.

Исследование не имело спонсорской поддержки. Авторы несут полную ответственность за предоставление окончательной версии рукописи в печать. Все авторы принимали участие в разработке концепции статьи и написании рукописи. Окончательная версия рукописи была одобрена всеми авторами.