

ВИПАДКИ ПОЄДНАННЯ АРТЕРІОВЕНОЗНИХ МАЛЬФОРМАЦІЙ ТА МНОЖИННИХ АНЕВРИЗМ СУДИН ГОЛОВНОГО МОЗКУ

Д.В. ЩЕГЛОВ, І.М. БОРТНІК, О.Є. СВИРИДЮК,
С.В. КОНОТОПЧИК

ДУ «Науково-практичний Центр ендovasкулярної нейрорентгенохірургії НАМН України»,
м. Київ

***Conflict of Interest Statement (We declare that we have no conflict of interest).**

*Заява про конфлікт інтересів (Ми заявляємо, що у нас немає ніякого конфлікту інтересів).

*Заявление о конфликте интересов (Мы заявляем, что у нас нет никакого конфликта интересов).

***No human/animal subjects policy requirements or funding disclosures.**

*Жодний із об'єктів дослідження (людина/тварина) не підпадає під вимоги політики щодо розкриття інформації фінансування.

*Ни один из объектов исследования не подпадает под политику раскрытия информации финансирования.

***Мета роботи** — проаналізувати клінічні випадки поєднання артеріовенозних мальформацій та множинних аневризм судин головного мозку і оцінити результати ендovasкулярного лікування цієї категорії хворих.*

***Матеріали та методи.** Проаналізовано три клінічні випадки поєднання АВМ та множинних аневризм судин головного мозку. Хворі перебували на лікуванні у ДУ «Науково-практичний Центр ендovasкулярної нейрорентгенохірургії НАМН України» у період з 2010 до 2015 р. Вік хворих — 46–47 років. Усі хворі прооперовані ендovasкулярним методом. Проводили емболізацію мальформацій за допомогою рідких емболізуювальних композицій. Аневризми виключали із кровообігу з використанням моноспіральної техніки оклюзії. Обстеження хворих передбачало збір анамнезу, оцінку неврологічного статусу та методи нейровізуалізації серед яких золотим стандартом була селективна церебральна ангіографія за Сельдингером.*

***Результати.** Спостерігали поєднання артеріовенозних мальформацій та множинних мішкоподібних аневризм вертебробазиллярного басейну. Усі хворі мали по дві асоційовані з мальформацією аневризми. У однієї хворої мав місце епілептиформний дебют захворювання, у двох хворих — геморагічний дебют у результаті розриву однієї із аневризм. З огляду на локалізацію патології та її множинність усі хворі були прооперовані ендovasкулярним методом. У разі геморагічного перебігу захворювання оперували насамперед ту патологію, яка клінічно виявилася. Усім хворим також рекомендовано радіохірургічне лікування резидуальної АВМ наступним етапом.*

У всіх випадках виконано субтотальну емболізацію АВМ та односесійне виключення множинних мішкоподібних аневризм з кровообігу. Виключення чотирьох аневризм відповідало 1-му типу за шкалою ефективності оклюзії Raymond–Roy, однієї аневризми — 2-му типу, ще

однієї аневризми — 3б типу. Через 7 міс градація за шкалою Raymond–Roy однієї із тотально виключених аневризм змінилася з 1-го типу на 2-й.

Клінічні результати ендovasкулярного лікування в усіх випадках хороші (5 балів за шкалою Glasgow Outcome Scale).

Висновки. Ендovasкулярна хірургія має необхідний арсенал методів для лікування зазначеної категорії хворих та є методом вибору з огляду на множинність патології, її локалізацію і можливість односесійних хірургічних втручань.

Ключові слова: артеріовенозна мальформація, множинні аневризми, ендovasкулярне лікування.

Поширеність артеріовенозних мальформацій (АВМ) становить 10–18 випадків на 100 тис. населення, а ймовірність виявлення симптомних АВМ — 1,3 випадку на 100 тис. населення на рік. Нещодавно проведений мета-аналіз усіх робіт, в яких вивчали клінічний перебіг АВМ, а також дослідження *ARUBA* визначили щорічний ризик крововиливу 2,2 % [4, 8].

За даними різних авторів, аневризми судин головного мозку трапляються у 1–10 % населення. У 90 % випадків вони призводять до виникнення геморагії з високим рівнем летальності (36,2 %), а у 17,9 % випадків — до тяжкої інвалідизації [1].

У серії досліджень із залученням 2037 хворих з інтракраніальними аневризмами (М. Каміноґо та співавт., 2003) множинні аневризми виявлено у 20,2 % жінок та 12,4 % чоловіків [6].

Частота виявлення асоціації АВМ та аневризм зростає з розвитком технологій нейровізуалізації і варіює від 2,7 до 23,0 % [11].

Поєднання АВМ та множинних аневризм у деяких серіях досліджень (К. Коґ та співавт., 2008) виявляли з частотою від 7,5 до 46,1 % [7].

Співіснування аневризм при АВМ головного мозку пов'язують із двома феноменами: аномалії сполучної тканини, залучені у генезис самої АВМ (врожений чинник), та механічний чинник підвищеного внутрішньосудинного тиску через високий потік крові крізь артеріовенозні шунти [2].

Асоційовані аневризми є предиктором кро-

вовиливу у хворих із АВМ: ризик крововиливу становить 7,0 % на рік порівняно з 1,7 % у разі мальформації без аневризми. Щорічний ризик крововиливу становить 5,3 % для аневризм, які розташовані на живлячих мальформацію артеріях. Аневризми, розташовані в структурі АВМ, є причиною крововиливу у 9,8 % випадків [11].

Наявність множинних інтракраніальних аневризм та АВМ є визначальним чинником ризику внутрішньочерепного крововиливу [3, 5].

Літературні дані про поєднання АВМ та множинних аневризм судин головного мозку спорадичні, мають низьку статистичну репрезентативність та носять переважно описовий характер.

Мета роботи — проаналізувати клінічні випадки поєднання артеріовенозних мальформацій та множинних аневризм судин головного мозку та оцінити результати ендovasкулярного лікування цієї категорії хворих.

Матеріали та методи

Проаналізовано три клінічні випадки поєднання артеріовенозних мальформацій та множинних аневризм судин головного мозку. Хворі перебували на лікуванні у ДУ «Науково-практичний Центр ендovasкулярної нейро-рентгенохірургії НАМН України» у період з 2010 до 2015 р. Вік хворих — 46–47 років.

Усі хворі прооперовані ендovasкулярним методом. Проводили емболізацію мальформацій за допомогою рідких емболізуювальних композицій. Аневризми виключали із кровообігу з використанням моноспіральної техніки оклюзії.

Обстеження хворих передбачало збір анамнезу, оцінку неврологічного статусу і за-

Бортнік Ігор Миколайович

лікар-нейрохірург

ДУ «Науково-практичний Центр ендovasкулярної нейро-рентгенохірургії НАМН України»

Адреса: 04050, м. Київ, вул. П. Майбороди, 32, корпус 5

Тел. роб.: (044) 483-32-17

Тел. моб.: (050) 610-07-07

E-mail: ibortnik77@gmail.com

стосування методів нейровізуалізації серед яких золотим стандартом була селективна церебральна ангиографія за Сельдингером.

Результати

Спостерігали поєднання АВМ та множинних мішкоподібних аневризм (МА) вертебро-базиллярного басейну (ВББ). Усі хворі мали по дві асоційовані з АВМ аневризми. У однієї хворої мав місце епілептиформний дебют захворювання, у двох хворих — геморагічний дебют у результаті розриву однієї із аневризм.

З огляду на локалізацію патології та її множинність, усі хворі були прооперовані ендovasкулярним методом. У разі геморагічного перебігу захворювання оперували насамперед ту патологію, яка клінічно виявилася. Усім хворим також рекомендовано радіохірургічне лікування резидуальної АВМ наступним етапом.

У всіх випадках виконано субтотальну емболізацію АВМ та односесійне виключення множинних МА з кровообігу. Виключення чотирьох аневризм відповідало 1-му типу за шкалою ефективності оклюзії *Raymond–Roy*, однієї аневризми — 2-му типу, ще однієї аневризми — 3б типу. Через 7 міс градація за шкалою *Raymond–Roy* однієї із тотально виключених аневризм змінилася з 1-го типу на 2-й.

Клінічні результати ендovasкулярного лікування в усіх випадках були хорошими (5 балів за шкалою *Glasgow Outcam Scale*).

Клінічний випадок № 1

Хвора Б., 40 років, епілептиформний дебют захворювання. За результатами церебральної ангиографії (ЦАГ) виявлено АВМ лівої потиличної ділянки головного мозку із переважним заповненням від гілок лівої задньої мозкової артерії (ЗМА) і частково лівої перикальозної та ангулярної артерій та дві МА у ВББ (аневризма основної артерії (ОА) — верхньої мозочкової артерії (ВМА) справа та МА ЗМА у P₁-сегменті зліва). МА ОА–ВМА однокамерна, конусоподібної форми із розмірами тіла 4,5 × 2,5 мм та широкою шийкою (2,0–2,5 мм у діаметрі). МА ЗМА сферичної форми 1,5 мм із шийкою, діаметр якої дорівнював тілу.

Виконано односесійне тотальне реконструктивне виключення із кровообігу анев-

ризм (1-й тип за шкалою *Raymond–Roy*) з використанням моноспіральної техніки оклюзії та субтотальну емболізацію АВМ. На контрольній ангиографії через 7 міс виявлено пришийкове заповнення МА ОА–ВМА (2-й тип за шкалою *Raymond–Roy*), тотальне виключення МА ЗМА та контрастування резидуальної АВМ за ангиоматозним типом у паренхіматозно-венозній фазі (рис. 1).

Клінічний випадок № 2

Хворий З., 47 років, субарахноїдально-вентрикулярний крововилив *Fisher IV, Hunt-Hess V, WFNS IV*, кома I, 7 балів за шкалою ком Глазго (ШКГ). На момент госпіталізації в клініку (25-та доба після крововиливу) загальний стан хворого ближче до середньої тяжкості (15 балів за ШКГ, *Hunt-Hess II, WFNS I*).

Проведено ЦАГ. Виявлено АВМ потиличної ділянки справа середнього розміру з аферентацією від гілок ЗМА у поєднанні з множинними аневризмами: МА ОА–ЗМА зліва розміром 5,7 × 6,0 мм із шийкою 3,5 мм і мікродивертикулом проксимально, двокамерна МА ОА–ВМА справа, ініціальна камера 2,5 × 2,0 мм із шийкою 2,5 мм, кінцева — сферична діаметром 5,12 мм. За даними ЦАГ, імовірно, мав місце розрив МА ОА–ЗМА.

Виконано односесійну оклюзію з використанням моноспіральної техніки МА ОА–ЗМА відповідно до 2-го типу за шкалою *Raymond–Roy* та МА ОА–ВМА відповідно до 3б типу за шкалою *Raymond–Roy* і часткову емболізацію АВМ гістоакрилом.

Через контрольний період 3 міс проведено повторне ендovasкулярне втручання — субтотальну емболізацію АВМ з використанням *Onix*. Ступінь оклюзії аневризм не змінився.

Через 12 міс зберігалася часткове заповнення АВМ. Повторно виконано субтотальну емболізацію гістоакрилом із каротидного басейну та ВББ. Контрольна ЦАГ через 37 міс: субтотально виключено АВМ із кровообігу із заповненням за ангиоматозним типом переважно у паренхіматозно-венозну фазу. Оклюзія МА ОА–ЗМА (2-й тип за шкалою *Raymond–Roy*) та МА ОА–ВМА *Raymond–Roy* (3б тип за шкалою *Raymond–Roy*) (рис. 2).

Клінічний випадок № 3

Хвора Р., 47 років, субарахноїдально-вен-

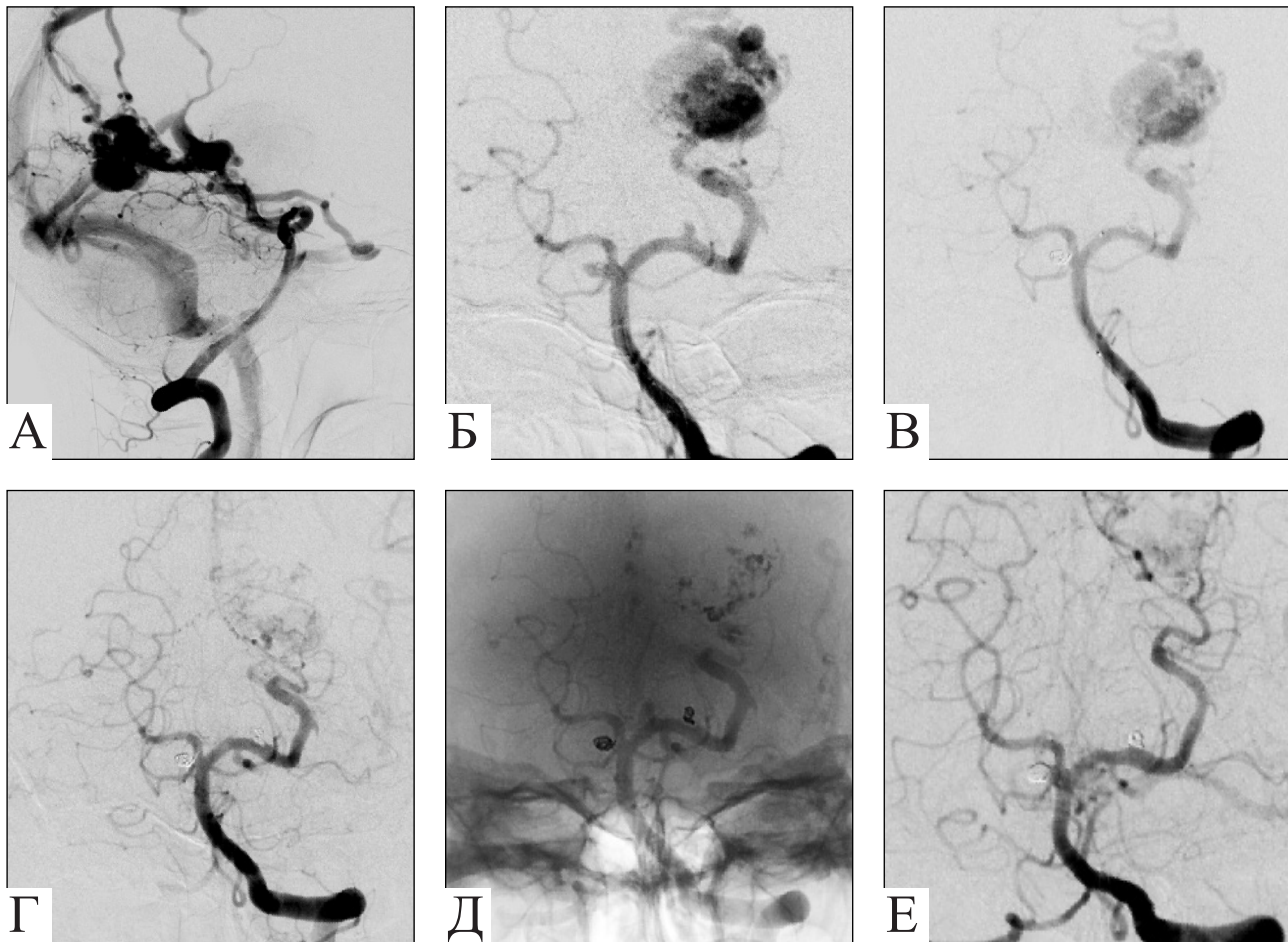


Рис. 1. Ангіограми хворої Б., 40 років: А — на доопераційній ЦАГ візуалізується АВМ лівої потиличної ділянки; Б — асоційовані з АВМ множинні аневризми: МА ОА–ВМА справа та МА ЗМА зліва; В — інтраопераційна ЦАГ: виконано тотальну оклюзію обох МА (1-й тип за шкалою Raymond–Roy) та субтотальну емболізацію АВМ; Г — нативна ЦАГ демонструє мікроспіралі та емболізат у структурі АВМ; Д — контрольна ЦАГ через 7 міс: пришийкове заповнення МА ОА–ВМА (2-й тип за шкалою Raymond–Roy); Е — тотальна оклюзія МА ЗМА та контрастування резидуальної АВМ у паренхіматозно-венозну фазу за ангиоматозним типом

трикулярний крововилив. Клінічна смерть на момент крововиливу. Госпіталізована в клініку на 11-ту добу в стані середньої тяжкості (15 балів за ШКТ, *Hunt-Hess II*, *WFNS II*). Під час проведення ЦАГ виявлена АВМ лівої півкулі мозочка з розмірами вузла $3,5 \times 2,0$ см, аферентами від задньонижньої, передньонижньої та верхньої мозочкових артерій і поверхневим дренажем. Асоціація із множинними аневризмами: біфуркаційна МА ОА розміром 8×4 мм із широкою шийкою та МА ЗМА P_2 – P_3 -сегмента зліва розміром 4×6 мм із шийкою, яка дорівнює тілу за діаметром.

Виконано ендovasкулярну одномоментну тотальну оклюзію МА ОА і МА ЗМА (1-й тип за шкалою *Raymond–Roy*) з використанням моноспіральної техніки і субтотальну емболізацію АВМ. На контрольній ЦАГ через 3 міс АВМ

заповнюється з дрібних гілок за ангиоматозним типом, тотальна оклюзія аневризм (рис. 3).

Обговорення

З огляду на складні патогемодинамічні умови при поєднанні АВМ та аневризм судин головного мозку використано класифікацію, яка ґрунтується на принципі відношення аневризм до АВМ та аферентної артерії відповідно до критеріїв, установлених Н.І. Perata та співавт. [9], котрі є вирішальними для вибору оптимальної тактики ендovasкулярного лікування.

В основі класифікації лежить поняття гемодинамічної залежності аневризми від АВМ та анатомічного співвідношення АВМ аневризми і церебральних судин.

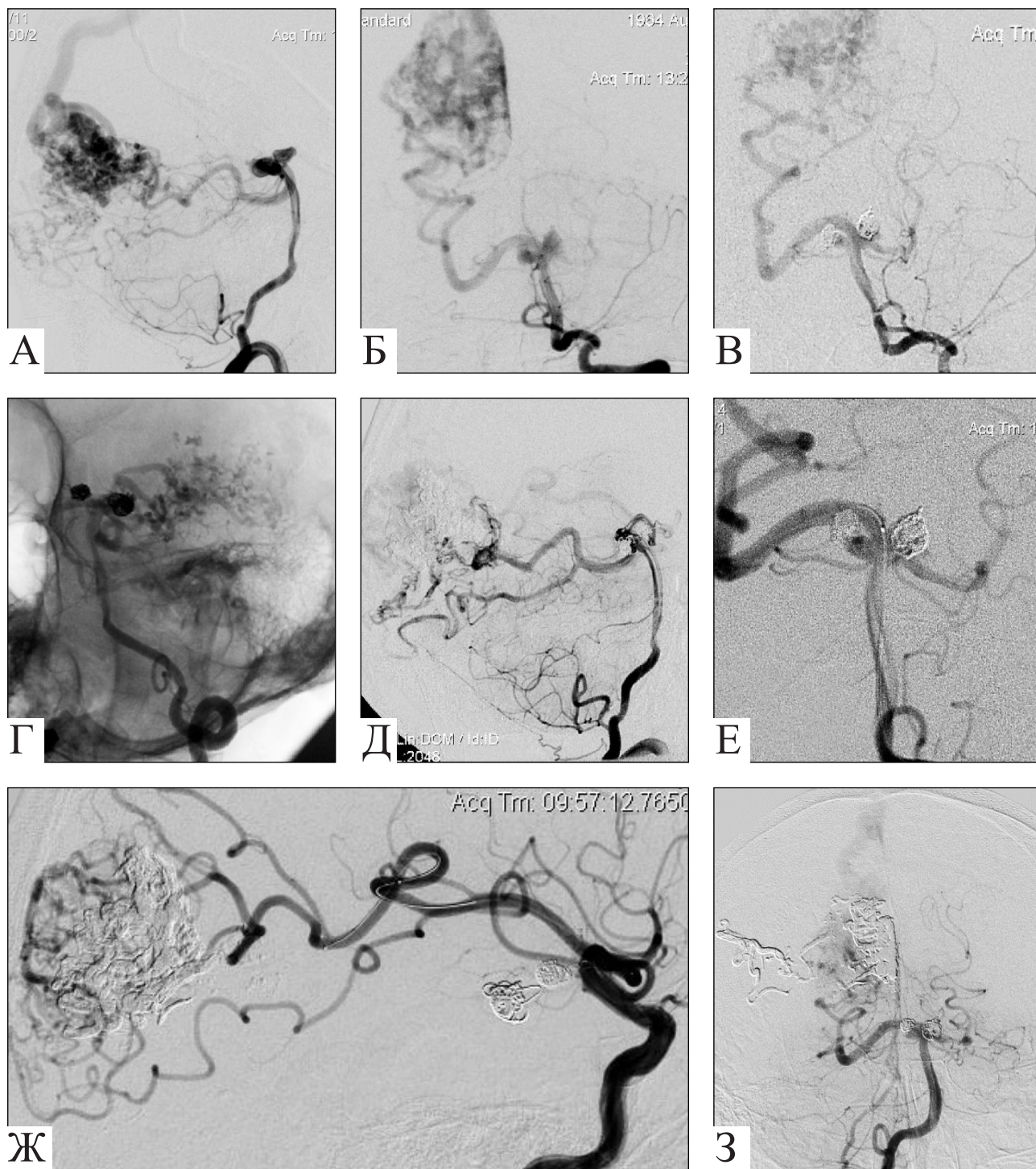


Рис. 2. Ангіограми хворого 3., 47 років. На доопераційній ЦАГ у бічній (А) та прямій (Б) проєкціях визначається АВМ потиличної ділянки зліва у поєднанні із МА ОА–ЗМА зліва та МА ОА–ВМА справа; В — оклюзія аневризм МА ОА–ЗМА (2-й тип за шкалою Raymond–Roy) та МА ОА–ВМА Raymond–Roy (3б тип за шкалою Raymond–Roy) і часткова емболізація АВМ; Г — нативна ангіографія демонструє мікроспіралі в порожнині аневризм та емболізат, який частково заповнює АВМ; Д — субтотальна емболізація АВМ через 3 міс; Е — ступінь оклюзії аневризм не змінився, Ж — повторна субтотальна емболізація АВМ через 12 міс; З — контрольна ЦАГ через 37 міс: заповнення резидуальної АВМ за ангіоматозним типом, ступінь оклюзії аневризм не змінився

Згідно з класифікацією виділено чотири основні типи поєднання АВМ та аневризм судин головного мозку:

1. Аневризма та АВМ розташовані у різних судинних басейнах та гемодинамічно не пов'язані.

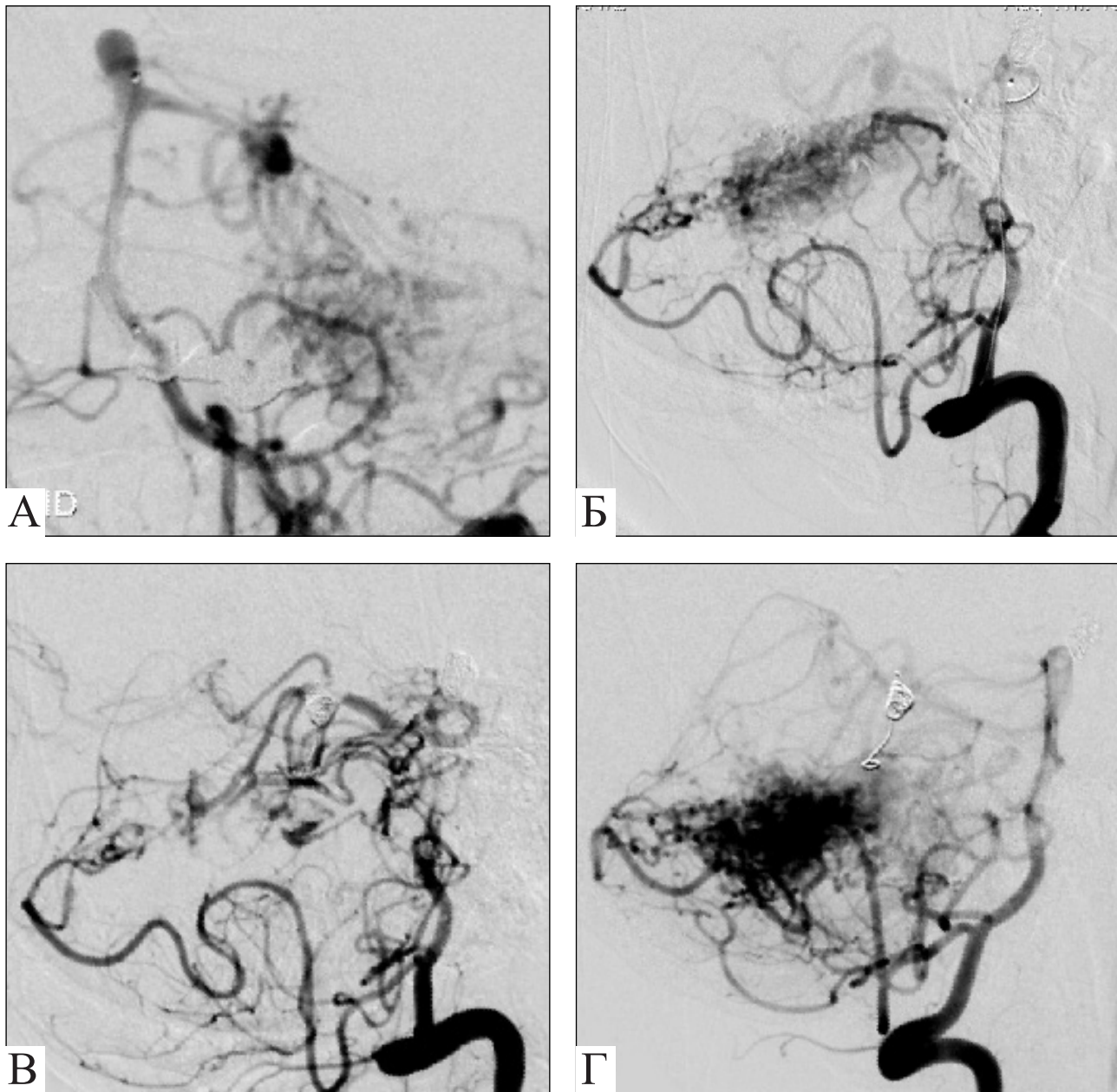


Рис. 3. Ангіограми хворої Р., 47 років: А — катетеризована МА ОА; Б — навігація мікрокатетера в МА ЗМА; В — тотальна оклюзія аневризм та субтотальна емболізація АВМ; Г — контрольна ЦАГ через 3 міс: тотальна оклюзія аневризм та ангиоматозне заповнення АВМ мозочка

2. Аневризма розташована в аферентному до мальформації басейні (гемодинамічно залежна аневризма (ГЗА)).

2.1. ГЗА розташована в межах або нижче за віллізієве коло.

2.2. ГЗА розташована на аферентній до АВМ артерії.

2.3. ГЗА розташована безпосередньо в ядрі АВМ.

У всіх наведених клінічних випадках мало місце поєднання АВМ та ГЗА, з яких дві відповідали критеріям п. 2.2 класифікації, чотири — критеріям п. 2.1.

Усі аневризми прооперовано з використанням мікроспіралей з огляду на наявність церебральних судин між ГЗА та АВМ.

У нашому огляді враховано лише випадки поєднання множинних МА аферентів із АВМ (пункти 2.1 та 2.2 класифікації), літературні повідомлення про які є рідкісними та описовими [7, 11].

Імовірно, контраверсні популяційно-статистичні дані із широким варіативним рядом (від 7,5 до 46,1 % [7]) щодо частоти поєднання множинних аневризм головного мозку із АВМ пояснюються розбіжністю у трактуван-

ні наведеної класифікації та стосуються також поєднання аневризм аферентів (пункти 2.1 і 2.2 класифікації) та інтранідальних аневризм (пункт 2.3 класифікації).

На підставі літературних повідомлень [7, 11] та результатів нашого огляду можна припустити найчастіше поєднання з АВМ множинних аневризм аферентів у ВББ.

Список літератури

1. Поліщук М.С., Дибкалюк С.В. Деякі прогностичні критерії результатів лікування хворих молодого та середнього віку з нетравматичним внутрішньомозковим кроволиливом // Лікар. Справа. — 2003. — № 5–6. — С. 57–60.
2. Bendjilali N., Nelson J., Weinsheimer S. et al. Common variants on 9p21.3 are associated with brain arteriovenous malformations with accompanying arterial aneurysms // J. Neurol. Neurosurg. Psychiatry. — 2015. — Vol. 86(5). — P. 524–529
3. DaCosta L., Wallace M.C., TerBrugge K.G. et al. The natural history and predictive features of hemorrhage from brain arteriovenous malformations // Stroke. — 2009. — Vol. 40. — P. 100–105.
4. Gross B.A., Du R. Natural history of cerebral arteriovenous malformations: a meta-analysis // J. Neurosurg. — 2013. — Vol. 118(2). — P. 437–443.
5. Hernesniemi J.A., Dashti R., Juvola S. et al. Natural history of brain arteriovenous malformations: a long-term follow-up study of risk of hemorrhage in 238 patients // Neurosurg. — 2008. — Vol. 63. — P. 823–829.
6. Kaminogo M., Yonekura M., Shibata S. Incidence and outcome of multiple intracranial aneurysms in a defined population // Stroke. — 2003. — Vol. 34(1). — P. 16–21.
7. Koç K., Ceylan S. Malformation associated with multiple aneurysms including anterior communicating artery aneurysm located in the third ventricle: A case report // Turkish Neurosurg. — 2008. — Vol. 18, N 1. — P. 61–64.
8. Mohr J.P., Parides M.K., Stapf C. et al. Medical management with or without interventional therapy for unruptured brain arteriovenous malformations (ARUBA): a multicentre, non-blinded, randomised trial // Lancet. — 2014. — Vol. 383. — P. 614–621.
9. Perata H.J., Tomsick T.A., Tew J.M. Jr. Feeding artery pedicle aneurysms: association with parenchymal hemorrhage and arteriovenous malformation in the brain // J. Neurosurg. — 1994. — Vol. 80. — P. 631–634.
10. Redekop G., TerBrugge K., Montanera W., Willinsky R. Arterial aneurysms associated with cerebral arteriovenous malformations: classification, incidence, and risk of hemorrhage // J. Neurosurg. — 1998. — Vol. 89. — P. 539–546.
11. Soo Mee Lim, Yong Jae Cho, Lee R. Multiple feeding artery pedicle pseudoaneurysms in the posterior circulation: association with hemorrhage and AVM // Neurointervention. — 2011. — N 6(1). — P. 27–30. doi: 10.5469/neuroint.2011.6.1.27 PMID: PMC3214807

Висновки

Ендоваскулярна хірургія має необхідний арсенал методів для лікування зазначеної категорії хворих та є методом вибору з огляду на множинність патології, її локалізацію та можливість односесійних хірургічних втручань.

СЛУЧАИ СОЧЕТАНИЯ АРТЕРИОВЕНОЗНЫХ МАЛЬФОРМАЦИЙ И МНОЖЕСТВЕННЫХ АНЕВРИЗМ СОСУДОВ ГОЛОВНОГО МОЗГА

Д.В. ЩЕГЛОВ, И.Н. БОРТНИК, О.Е. СВИРИДЮК, С.В. КОНОТОПЧИК

ГУ «Научно-практический Центр эндоваскулярной нейрорентгенохирургии НАМН Украины», г. Киев

Цель работы — проанализировать клинические случаи сочетания артериовенозных мальформаций (АВМ) и множественных аневризм сосудов головного мозга и оценить результаты эндоваскулярного лечения данной категории больных.

Материалы и методы. Проанализированы три клинических случая сочетания артериовенозных мальформаций и множественных аневризм сосудов головного мозга. Больные находились на лечении в ГУ «Научно-практический Центр эндоваскулярной нейрорентгенохирургии НАМН Украины» в период с 2010 по 2015 г. Возраст больных — 46–47 лет. Все больные оперированы эндоваскулярным методом. Проводили эмболизацию мальформаций с помощью жидких эмболизирующих композиций. Аневризмы выключали из кровообращения с использованием моноспиральной техники окклюзии. Обследование больных предусматривало сбор анамнеза, оценку неврологического статуса и применение методов нейровизуализации среди которых золотым стандартом была селективная церебральная ангиография по Сельдингеру.

Результаты. Наблюдали сочетание артериовенозных мальформаций и множественных мешковидных аневризм вертебробазилярного бассейна. Все больные имели по две ассоциированные с мальформацией аневризмы. У одной больной имел место эпилептиформный дебют заболевания и у двух больных — геморрагический дебют в результате разрыва одной из аневризм.

Учитывая локализацию патологии и ее множественность, все больные были оперированы эндоваскулярным методом. В случае геморрагического течения заболевания оперировали прежде всего ту патологию, которая клинически себя проявила. Всем больным также рекомендовано радиохирургическое лечение резидуальной АВМ следующим этапом.

Во всех случаях выполнена субтотальная эмболизация АВМ и односессионное выключение множественных мешковидных аневризм из кровообращения. Выключение четырех аневризм соответствовало 1-му типу по шкале эффективности окклюзии *Raymond-Roy*, одной аневризмы — 2-му типу и одной аневризмы — 3б типу. Через 7 мес грация по шкале *Raymond-Roy* одной из totally исключенных аневризм изменилась с 1-го типа на 2-й.

Клинические результаты эндоваскулярного лечения во всех случаях хорошие (5 баллов по шкале *Glasgow Outcam Scale*).

Выводы. Эндоваскулярная хирургия имеет необходимый арсенал методов для лечения данной категории больных и является методом выбора с учетом множественности патологии, ее локализации и возможности односессионных хирургических вмешательств.

Ключевые слова: артериовенозная мальформация, множественные аневризмы, эндоваскулярное лечение.

CASES OF ARTERIOVENOUS MALFORMATIONS AND MULTIPLE CEREBRAL ANEURYSMS

D.V. SCHEGLOV, I.M. BORTNIK, O.E. SVIRIDYUK, S.V. KONOTOPCHYK

SO «Scientific-practical Centre of Endovascular Neuroradiology NAMS of Ukraine», Kyiv

Objective — to study the clinical cases of arteriovenous malformations (AVM) with multiple cerebral aneurysms and to evaluate the results of endovascular treatment in these patients.

Materials and methods. Three clinical cases (one man and two women) of AVM and multiple cerebral aneurysms were analysed. Patients were treated at Scientific-practical Centre of Endovascular Neuroradiology NAMS of Ukraine (Kyiv) from 2010 to 2015. The age of patients — from 46 to 47 years. All patients were operated using endovascular technique. AVM were embolized with liquid compositions. Aneurysms were coiling with detached coils. Patients examination included medical history, neurological status and neuroimaging. The «gold» standard — selective cerebral angiography.

Results. There was a combination of AVM and cerebral aneurysms of vertebro-basilar arteries. All patients with AVM had at least two aneurysms (in all — 6 aneurysms). Subtotal embolization of AVM and MA coiling was performed simultaneously in all cases. According to the Raymond–Roy density occlusion scale, the total (I type by scale Raymond–Roy) off were achieved in 4 aneurysms, II type — in one aneurysm and III type also in one aneurysm. One aneurysm that was excluded totally (I type) during the control period in 7 months changed the density of occlusion to II type. In the case of hemorrhagic manifestation, clinical pathology that appeared to be the cause was dealing first. Taking into consideration the localization of pathology and its multiple origin, endovascular treatment is the priority in these cases. Radiosurgical treatment was recommended for residual AVM in all cases. Clinical results of endovascular treatment in all these cases were good (5 points according to Glasgow Outcome Score).

Conclusions. Endovascular surgery has the necessary arsenal of methods to treat these patients and is the «gold» standard considering the multiple pathology and the possibility for simultaneous treatment of both AVM and MA.

Key words: arteriovenous malformation, multiple aneurysms, endovascular treatment.