

Спонтанная облитерация врожденной артериовенозной мальформации головного мозга в детском возрасте

М.Л. Лагунавичене, С.Н. Ларионов, Ю.А. Александров, А.В. Ливадаров, П.Г. Грузин, Г.С. Жданович

ОГАУЗ «Городская Ивано-Матренинская детская клиническая больница», Иркутск, Россия

Spontaneous obliteration of congenital arteriovenous malformation of the brain in childhood

M.L. Lagunavichene, S.N. Larionov, Yu.A. Alexandrov, A.V. Livadarov, P.G. Gruzin, G.S. Zhdanovich

City Ivano-Matreninskaya Children's Clinical Hospital, Irkutsk, Russia

Цель работы: представление клинического случая спонтанной облитерации врожденной артериовенозной мальформации головного мозга у ребенка 4 лет.

Артериовенозная мальформация выявлена у девочки в возрасте 1 мес по данным нейросонографии и подтверждена по результатам магнитно-резонансной томографии и мультиспиральной компьютерной томографии головного мозга. Оперативное и медикаментозное лечение ребенку не проводилось. Динамическое наблюдение показало уменьшение размеров мальформации, а контрольное обследование в возрасте 4 лет выявило очаг глиоза, что свидетельствует о полном спонтанном регрессе артериовенозной мальформации. В статье обсуждаются особенности диагностики, тактики консервативного и хирургического лечения детей с артериовенозными мальформациями.

Ключевые слова: дети, артериовенозная мальформация, кровоизлияние, облитерация, тактика лечения.

Для цитирования: Лагунавичене М.Л., Ларионов С.Н., Александров Ю.А., Ливадаров А.В., Грузин П.Г., Жданович Г.С. Спонтанная облитерация врожденной артериовенозной мальформации головного мозга в детском возрасте. Рос вестн перинатол и педиатр 2020; 65:(3): 126–130. DOI: 10.21508/1027-4065-2020-65-3-126-130

Objective: to present a clinical case of spontaneous obliteration of congenital arteriovenous malformation of the brain in a 4-year-old child.

Neurosonography revealed arteriovenous malformation in a 1-month-old girl; the diagnosis was confirmed by magnetic resonance imaging and multispiral computed tomography of the brain. The child did not receive surgical and drug treatment. Dynamic observation showed a decrease of malformation, and a control examination (age: 4 years) revealed a focus of gliosis, which indicated a complete spontaneous regression of arteriovenous malformation. The authors discuss diagnostic features, tactics of conservative and surgical treatment of children with arteriovenous malformation.

Key words: children, arteriovenous malformation, hemorrhage, obliteration, treatment tactics.

For citation: Lagunavichene M.L., Larionov S.N., Alexandrov Yu.A., Livadarov A.V., Gruzin P.G., Zhdanovich G.S. Spontaneous obliteration of congenital arteriovenous malformation of the brain in childhood. Ros Vestn Perinatol i PEDIATR 2020; 65:(3): 126–130 (in Russ). DOI: 10.21508/1027-4065-2020-65-3-126-130

Артериовенозные мальформации головного мозга представляют значительную часть врожденной сосудистой патологии, при которой формируются фистульные или сетчатые артериовенозные шунты. Последние представлены ангиоматозной тканью (клубок мельчайших капилляров — «центральный очаг мальформации», или англ. «nidus»), через которую осуществляется перераспределение

крови между артериальными и венозными бассейнами [1]. Частота выявления артериовенозных мальформаций составляет от 14 до 28 случаев на 100 тыс. детского населения в год, что в 10 раз меньше, чем во взрослой популяции. Половые и возрастные характеристики неспецифичны, а соотношение мальчиков и девочек в среднем составляет 1,4 : 1 [2, 3]. У детей мальформации преимущественно

© Коллектив авторов, 2020

Адрес для корреспонденции: Лагунавичене Маргарита Львовна — врач-невролог нейрохирургического отделения Городской Ивано-Матренинской детской клинической больницы, ORCID: 0000-0001-7061-6300 e-mail: lagr93@mail.ru

Ларионов Сергей Николаевич — д.м.н., врач-нейрохирург нейрохирургического отделения Городской Ивано-Матренинской детской клинической больницы, ORCID: 0000-0001-9189-3323

Грузин Павел Григорьевич — врач-нейрохирург нейрохирургического отделения Городской Ивано-Матренинской детской клинической больницы, ORCID: 0000-0001-6393-1548

Ливадаров Андрей Владимирович — зав.отделением, врач-нейрохирург

нейрохирургического отделения Городской Ивано-Матренинской детской клинической больницы, ORCID: 8-395-2-218-980

Грузин Павел Григорьевич — врач-нейрохирург нейрохирургического отделения Городской Ивано-Матренинской детской клинической больницы, ORCID: 8-395-2-218-980

Жданович Глеб Сергеевич — врач-нейрохирург нейрохирургического отделения Городской Ивано-Матренинской детской клинической больницы, ORCID: 8-395-2-218-980;

Александров Юрий Анатольевич — врач-невролог высшей категории нейрохирургического отделения Городской Ивано-Матренинской детской клинической больницы, ORCID: 8-395-2-218-980

664007 Иркутск, ул. Советская, д. 57

локализуются в глубинных отделах мозга и имеют сложное строение. Супратенториальные мальформации встречаются чаще субтенториальных (3 : 1). Между возрастом ребенка, размером, локализацией и типом дренажа артериовенозных мальформаций выявляется корреляция: у детей дошкольного возраста мальформации в большинстве случаев имеют большие и гигантские размеры, афферентами служат несколько сосудов, а отток происходит в глубокие вены мозга [4]. Кроме того, существуют два возрастных пика выявления — 1-й и 10-й годы жизни ребенка [5, 6]. Мальформации независимо от размеров и наличия или отсутствия центрального очага характеризуются артериовенозным шунтированием, в связи с чем симптоматика крайне вариабельна с точки зрения как патоморфологии, так и гемодинамических расстройств, а клинический исход редко предсказуем.

Риск кровоизлияния из артериовенозных мальформаций у детей, по мнению разных авторов, колеблется от 6,2 до 11,4% в год [7]. При этом высокую частоту кровоизлияния можно объяснить расположением центрального очага мальформации в зонах смежного кровоснабжения разных артериальных бассейнов, чаще в глубинных отделах лобно-теменной области, лобной или затылочной доли, полушариях мозжечка, а также на конвексимальной поверхности полушарий мозга [8].

Помимо геморрагических проявлений, симптоматика мальформаций может быть обусловлена как сдавлением окружающих структур, так и гемодинамическими расстройствами с формированием зон гипо- или гиперперфузии мозга и включает судорожные пароксизмы — у 12% пациентов,

головные боли — у 15%, нарастающий неврологический дефицит (снижение слуха, парезы, выпадение чувствительности, моторную или сенсорную афазию, дизартрию, отек дисков зрительных нервов) — у 51% [1]. Специфическими проявлениями артериовенозных мальформаций у детей первых месяцев жизни служат прогрессирующая сердечная недостаточность, макро- и гидроцефалия, что особенно характерно для мальформаций области вены Галена [9].

Главная цель лечения при сосудистых мальформациях головного мозга — устранение основного очага поражения, и эта цель может быть достигнута за счет окклюзии либо полного удаления «центрального очага». Среди существующих методов лечения можно выделить медикаментозные, открытые микрохирургические операции, эндоваскулярные вмешательства, радиохирургию [10, 11]. Однако с частотой 0,8–1,3% встречается спонтанный полный регресс артериовенозных мальформаций [12, 13].

Цель сообщения: представление клинического случая спонтанного регресса артериовенозной мальформации у девочки 4 лет.

Клиническое наблюдение. Девочка С. впервые поступила в отделение нейрохирургии в 2014 г. в возрасте 2 мес с целью дообследования. Из анамнеза известно, что ребенок от шестой беременности, протекавшей на фоне угрозы прерывания на ранних сроках, с отеками и хроническим циститом во второй половине, третьих самостоятельных родов на сроке 40 нед. Закричала сразу, к груди не приложена. Оценка по шкале Апгар 8/9 баллов. Масса при рождении 3530 г, длина 51 см. Росла и развивалась соответственно возрасту. При нейросоно-

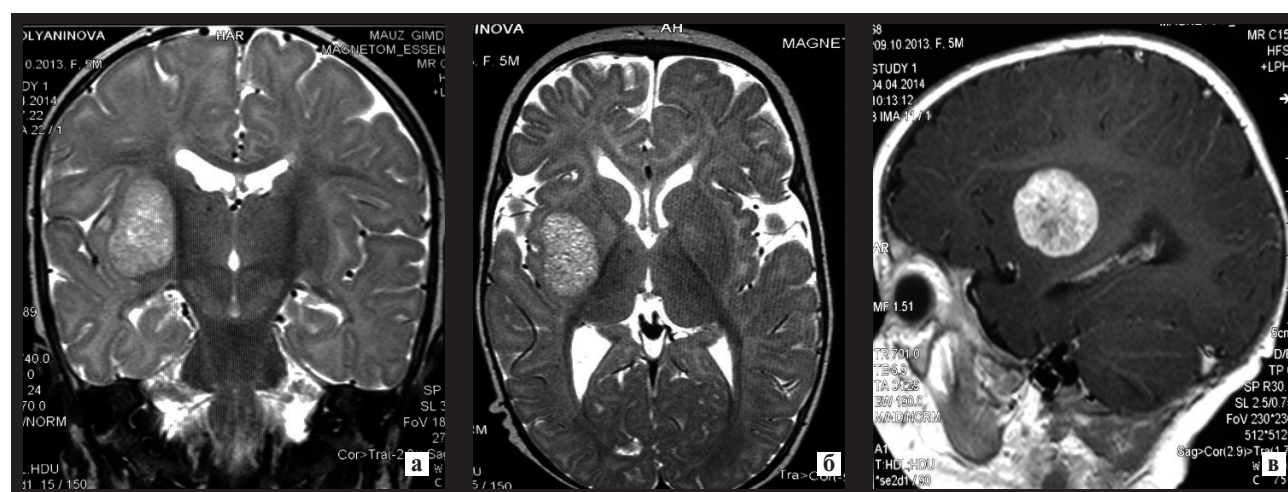


Рис. 1. Магнитно-резонансная томограмма головного мозга ребенка С. в возрасте 2 мес.

а — коронарное сечение; б — аксиальное сечение, T_2 -взвешенное изображение; в — сагиттальное сечение, внутривенное усиление, T_1 -взвешенное изображение. Визуализируется объемное образование правого полушария мозга, размерами 32,3×17,6×16,2 мм.

Fig. 1. Magnetic resonance tomography of the brain of a child C. aged 2 months.

а — coronary section; б — axial section, T_2 weighted image; в — sagittal section, intravenous amplification, T_1 weighted image. The volume formation of the right hemisphere of the brain is visualized, with dimensions of 32,3×17,6×16,2 mm.

графии (НСГ) в возрасте 1 мес (март 2014 г.) было обнаружено объемное образование головного мозга. В апреле 2014 г. выполнена магнитно-резонансная томография (МРТ) головного мозга с внутривенным усилением (рис. 1) и установлен диагноз артериовенозной мальформации правого полушария головного мозга. В июне 2014 г. (возраст 5 мес) девочке проведена мультиспиральная компьютерная томография (МСКТ) головного мозга с внутривенным усилением, подтвержден диагноз: артериовенозная мальформация правой гемисферы головного мозга (рис. 2).

Психомоторное развитие соответствовало возрасту, в связи с чем ребенок с рекомендациями был выписан на амбулаторный этап наблюдения. Повторные плановые инструментальные обследования (МСКТ и МРТ-ангиография) проведены в 2015–2017 гг. — отмечено уменьшение размеров мальформации. В связи с отсутствием нарастающего неврологического дефицита, а также уменьшением размеров маль-

формации родители сдержанно отнеслись к вопросу об оперативном лечении. В июле 2019 г. (в возрасте 5 лет) проведено контрольное МРТ-исследование головного мозга с внутривенным усилением (рис. 3), выявлены очаг глиоза, полный спонтанный регресс артериовенозной мальформации.

В литературе к 2014 г. было описано 132 случая спонтанной облитерации артериовенозных мальформаций, преимущественно у взрослых (предполагаемая частота 0,3–1,3%) [14, 15]. В детской практике случаи облитерации единичны, а для младенцев являются казуистикой, что связано как с редкостью выявления патологии, так и низкой частотой самоизлечения [16].

Спонтанная облитерация рассматривается как исчезновение мальформации в отсутствие вмешательства или терапии. Существуют различные предположения для объяснения регресса артериовенозных мальформаций: окклюзия венозного оттока, блокада артериальных коллекторов. Теории облите-

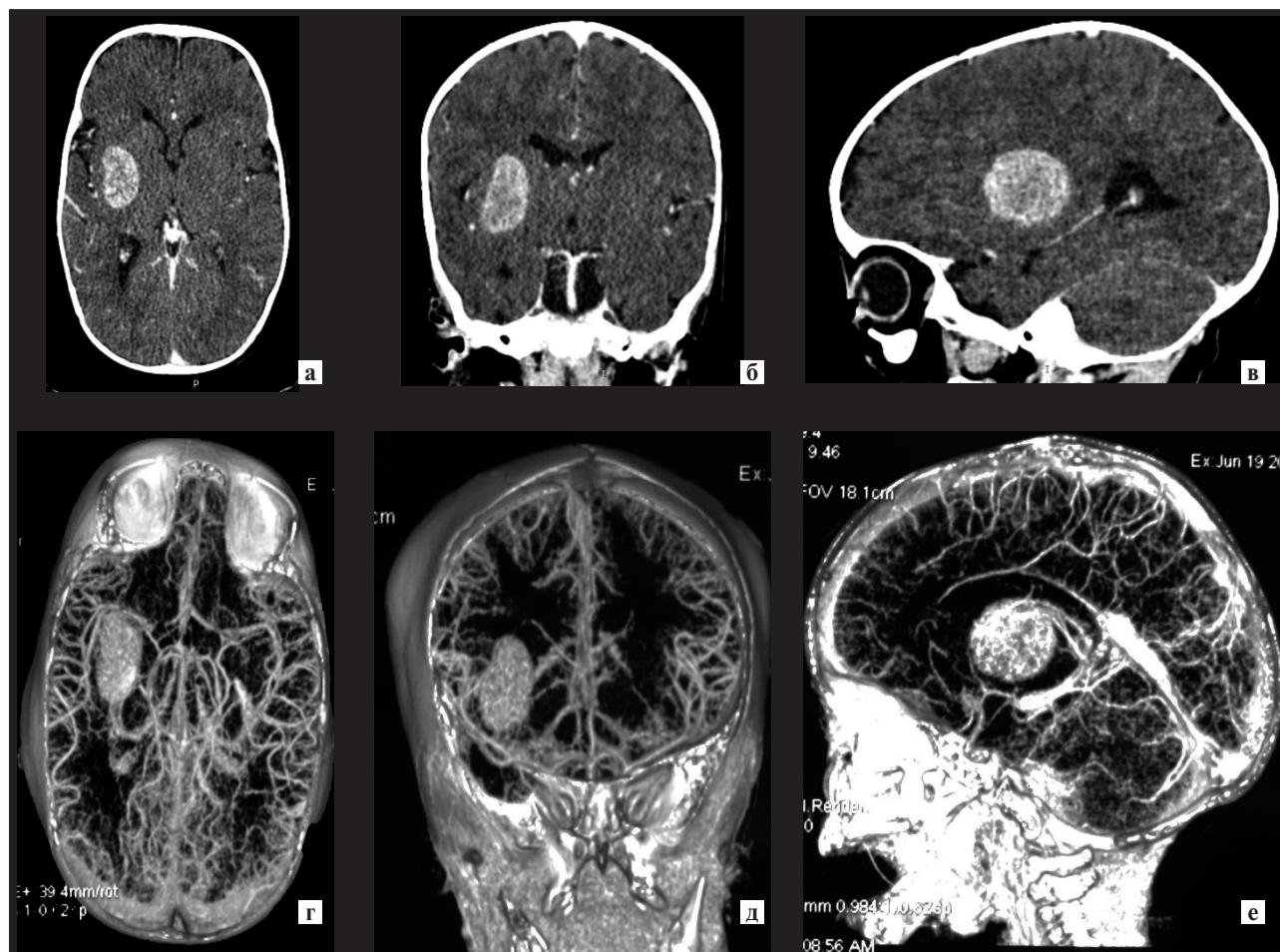


Рис. 2. Мультиспиральная компьютерная томограмма (МСКТ) головного мозга и МСКТ-ангиограмма ребенка С. в возрасте 5 мес. а — е — аксиальный, коронарный и сагиттальный срезы; визуализируется сосудистое образование правого полушария головного мозга, при внутривенном усилении отмечается накопление контрастного вещества.

Fig. 2. Multislice computed tomography/Multislice computed tomography (MSCT) of the brain and MSCT angiogram of child C. aged 5 months.

а — е — axial, coronary and sagittal sections; the vascular formation of the right hemisphere of the brain is visualized, with intravenous amplification, the accumulation of contrast medium is noted.

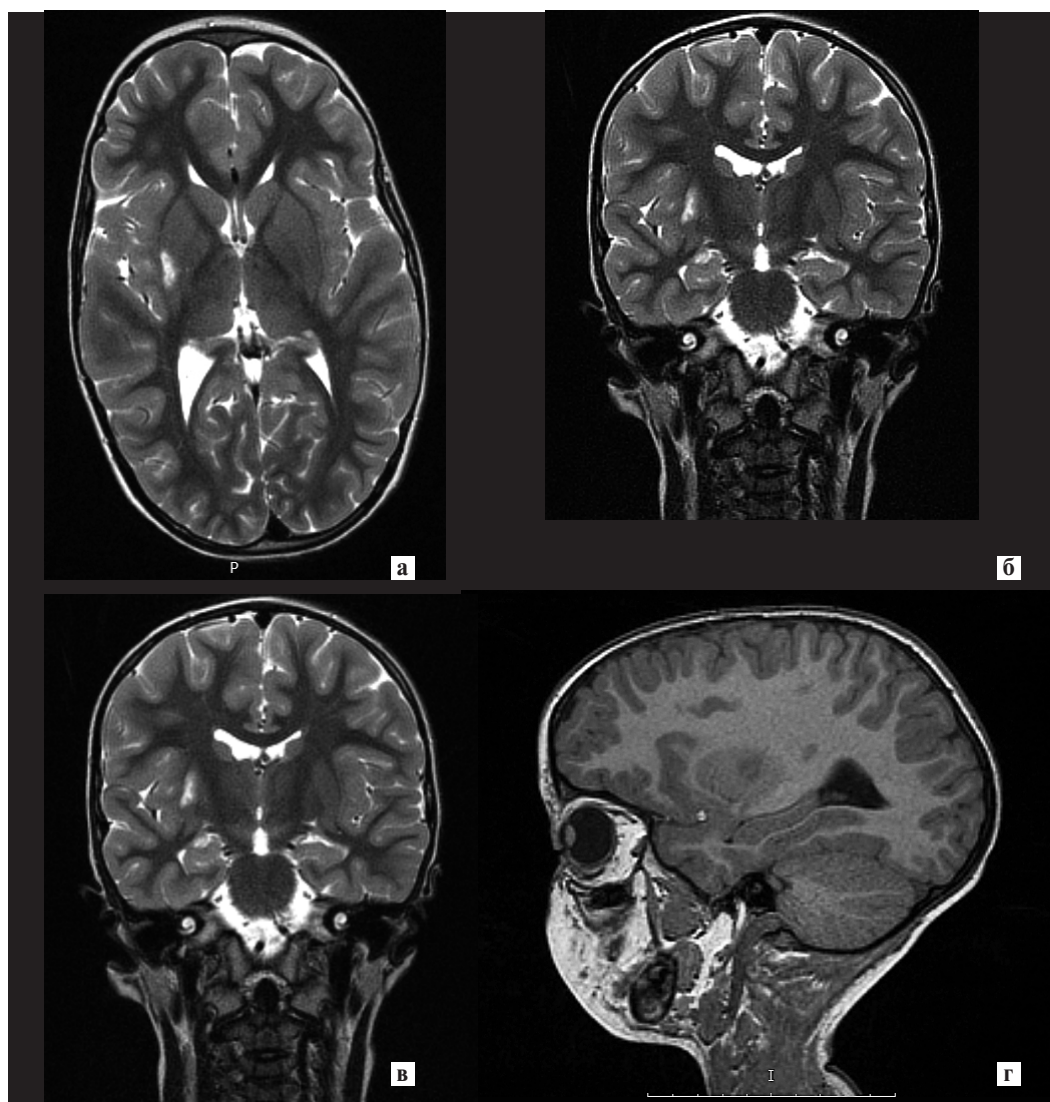


Рис. 3. Магнитно-резонансная томограмма головного мозга ребенка С. в возрасте 5 лет.
а — аксиальный срез; б — коронарный срез; в — сагиттальный срез; в теменно-височной области визуализируется очаг глиоза размером 18×3×1 мм.
Fig. 3. MRI scans of the brain of a child С. aged 5 years.
а — axial section; б — coronary section; в — saggy section. In the parietal-temporal growth, a focus of gliosis is visualized, 18×3×1 mm in size.

рации артериовенозных мальформаций после кровоизлияния, ее компрессии вследствие отека или гематомы основаны на объективных признаках; гипотезы окклюзии в результате изменения турбулентности потока внутри фидеров [11–13] или вследствие транзиторной гиперкоагуляции [6] имеют «предполагаемую» доказательную базу [2, 16]. Риск реканализации мальформации и кровоизлияния составляет не более 3% и сохраняется в течение 2–5 лет.

В клинической практике прогноз при артериовенозных мальформациях зависит от нескольких факторов, из них основные — время установления диагноза и адекватность лечения [11, 14, 17]. У детей при прогрессировании мальформации течение заболевания значительно тяжелее, чем у взрослых, а тактика лечения подразумевает стабилизацию

состояния, предотвращение неврологических расстройств и кровотечений.

Заключение

Представленное наблюдение демонстрирует возможность спонтанного регресса артериовенозной мальформации, крайне редко встречаемого в детской практике явления. Выбор тактики лечения должен быть основан на анализе совокупности инструментальных данных, а также клинических проявлений нарушения соматического и неврологического статуса.

ЛИТЕРАТУРА (REFERENCES)

1. *Stapf C., Khaw A.V., Sciacco R.R., Hofmeister C., Schumacher H.C., Pile-Spellman J. et al.* Effect of age on clinical and morphological characteristics in patients with brain arteriovenous malformations. *Stroke* 2003; 34: 2664–2670. DOI: 10.1161/01.STR.0000094824.03372.9B
2. *Холін А.В.* Сосудистая патология головного мозга. Магнитно-резонансная томография при заболеваниях и травмах центральной нервной системы. М.: Медпресс, 2017; 144–145. [*Holin A.V.* Vascular pathology of the brain. Magnetic resonance imaging in diseases and injuries of the Central nervous system. Moscow: Medpress, 2017; 144–145. (in Russ.)]
3. *Börcek A.Ö.* Clinical Outcomes of Stereotactic Radiosurgery for Cerebral Arteriovenous Malformations in Pediatric Patients: Systematic Review and Meta-Analysis. *Neurosurgery* 2019; 85: 629–640. DOI: 10.1093/neuros/nyz146
4. *Di Rocco C., Tamburrini G., Rollo M.* Cerebral arteriovenous malformations in children. *Acta Neurochirurgica* 2000; 142(2): 145–158. DOI: 10.1007/s007010050017
5. *Орлов М.Ю.* Артериовенозные мальформации головного мозга у детей. Украинський нейрохірургічний журнал 2007; 1: 15–20. [*Orlov M.Yu.* Brain arteriovenous malformations in children. *Ukrains'kij neirokhirurgichnij zhurnal* (Ukrainian Neurosurgical Journal) 2007; 1: 15–20. (in Russ.)]
6. *Buis D.R.* Spontaneous regression of brain arteriovenous malformations A clinical study and a systematic review of the literature. *J Neurol* 2004; 251: 1375–1382. DOI: 10.1007/s00415-004-0548-3
7. *Malik G., Abdulrauf S., Yang X.Y., Gutierrez J.A., Rempel S.A.* Expression of transforming growth factor-beta complex in arteriovenous malformations. *Neurol Med Cbir* 1998; 38: 161–164. DOI: 10.2176/nmc.38.suppl_161
8. *Jones B.V., Ball W.S., Tomsick T.A., Millard J., Crone K.R.* Vein of Galen aneurismal malformation: diagnosis and treatment of 13 children with extended clinical follow-up. *Am J Neuroradiol* 2002; 23(10): 1717–1724.
9. *Миронова А.К., Шарыкин А.С., Ватолин К.В., Пыков М.И., Османов И.М.* Диагностика и тактика наблюдения новорожденных с артериовенозной мальформацией вены Галена в многопрофильном детском стационаре. Российский вестник перинатологии и педиатрии 2020; 65(3): 138–146. [*Mironova A.K., Sharykin A.S., Vatin K.V., Pykov M.I., Osmanov I.M.* Diagnostics and tactics of observation of newborns with arteriovenous malformation of the Galena vein in a multidisciplinary children's hospital. *Rossiyskiy Vestnik Perinatologii i Pediatrii* (Russian Bulletin of Perinatology and Pediatrics) 2020; 65(3): 138–146. (in Russ.)]
10. *Дан В.Н., Аракелян В.С., Богачев В.Ю., Бубнова Н.А., Кармазановский Г.Г., Карпенко А.А. и др.* Ангиология и сосудистая хирургия. М.: Ангиология-ИНФО, 2015; 28. [*Dan V.N., Arakelyan V.S., Bogachev V.YU., Bubnova N.A., Karmazanovskij G.G., Karpenko A.A. et al.* Angiology and vascular surgery. Moscow, 2015; 15–20. (in Russ.)]
11. *Herbert C., Moiseenko V., McKenzie M., Redekop G., Hsu F., Gete E. et al.* Factors Predictive of Obliteration After Arteriovenous Malformation Radiosurgery. *Can J Neurol Sci* 2011; 38: 845–850. DOI: 10.1017/S0317167100012415
12. *Patel M.C., Hodgson T.J., Kemeny A.A., Forster D.M.* Spontaneous obliteration of pial arteriovenous malformations: a review of 27 cases. *Am J Neuroradiol* 2001; 22(3): 531–536.
13. *Lim S.L., Foo A.S., Karlsson B., Yeo T.T.* Spontaneous obliteration highlights the dynamic nature of cerebral arteriovenous malformations: A case report and review of the literature. *Surg Neurol Int* 2016; 7: 45. DOI: 10.4103/2152-7806.180766
14. *Mohr J.P.* Medical management with or without interventional therapy for unruptured brain arteriovenous malformations (ARUBA): a multicentre, non-blinded, randomized trial. *Lancet* 2014; 9917(383): 614–621. DOI: 10.1016/S0140-6736(13)62302-8
15. *Leung K.M., Agid R., Brugge K.* Spontaneous regression of cerebral arteriovenous malformation in hereditary hemorrhagic telangiectasia. *J Neurosurg* 2006; 105: 428–431. DOI: 10.3171/ped.2006.105.5.428
16. *Abdulrauf S.I., Malik G.M., Awad I.A.* Spontaneous angiographic obliteration of cerebral arteriovenous malformations. *Neurosurg* 1999; 44: 280–287. DOI: 10.1097/00006123-199902000-00021
17. *Kano H., Flickinger J.C., Nakamura A., Jacobs R.C., Tonetti D.A., Lehecky C. et al.* How to improve obliteration rates during volume-staged stereotactic radiosurgery for large arteriovenous malformations. *J Neurosurg* 2018; 130(3): 1–8. DOI: 10.3171/2018.2.JNS172964

Поступила: 12.01.20

Received on: 2020.01.12

Конфликт интересов:

Авторы данной статьи подтвердили отсутствие конфликта интересов и финансовой поддержки, о которых необходимо сообщить.

Conflict of interest:

The authors of this article confirmed the lack of conflict of interest and financial support, which should be reported.