

18例硬脊膜动静脉瘘的临床特征及影像学分析

易娟,黎红华,朱旗,饶文洁,杨柳

摘要 目的:提高硬脊膜动静脉瘘(SDAVF)的临床诊断及鉴别诊断水平。方法:选取中部战区总医院2015年1月至2021年5月经数字减影血管造影(DSA)确诊的SDAVF患者18例,回顾性总结分析SDAVF的临床特征和影像学特点。结果:18例SDAVF患者中,男16例、女2例;年龄27~73岁,中位年龄64岁;病程4 d~10年;急性起病4例(22%),慢性病程14例(78%);从发病至确诊平均(17.5±6.7)个月。MRI表现为髓内异常信号,脊髓增粗并呈条形或斑片状强化,同时可见脊髓背侧串珠状、虫蚀状血管影。18例患者中14例完善320排动态容积CT检查,10例有阳性发现(71%)。18例患者均完善DSA检查,显示瘘口位于颈段4例(23%),胸段9例(50%),腰段5例(27%)。及时行血管栓塞术或手术灼闭瘘口后大部分患者均好转。结论:SDAVF临床表现缺乏特异性,对于诊断不清楚的脊髓病变要警惕SDAVF的可能。脊髓MRI可作SDAVF首选检查,CTA可作为SDAVF初筛及术后复查,DSA检查是早期确诊的金标准,但对于首次脊髓DSA阴性,建议随访脊髓DSA检查。

关键词 硬脊膜动静脉瘘;临床特征;磁共振;数字减影血管造影

中图分类号 R741;R741.02;R744.1;R816 **文献标识码** A **DOI** 10.16780/j.cnki.sjssgncj.20210924

本文引用格式: 易娟,黎红华,朱旗,饶文洁,杨柳. 18例硬脊膜动静脉瘘的临床特征及影像学分析[J]. 神经损伤与功能重建, 2022, 17(8): 473-475.

作者单位
中部战区总医院神
经内科
武汉 430070
收稿日期
2021-12-06
通讯作者
杨柳
414718795@
qq.com

硬脊膜动静脉瘘(spinal dural arteriovenous fistula, SDAVF)是临床罕见的脊髓动静脉畸形,约占脊髓血管病变的60%~80%^[1]。SDAVF大多隐匿起病,临床表现没有特异性,容易导致漏诊。本文回顾性分析18例SDAVF患者的临床资料,总结其临床特征、影像学特点、治疗和转归情况,以提高SDAVF的早期诊断率和治疗水平。

1 资料与方法

1.1 一般资料

收集2015年1月至2021年5月中部战区总医院收治的SDAVF患者18例,均经DSA确诊。其中男16例,女2例;年龄27~73岁,中位年龄64岁;病程4 d~10年;急性起病4例(22%),慢性病程14例(78%);从发病至确诊(17.5±6.7)个月。

1.2 方法

18例患者均完善磁共振成像(magnetic resonance imaging, MRI)检查。采用美国通用公司Signa HDx 1.5T型MR扫描仪,在横断面、矢状面和冠状面分别行T₁WI和T₂WI扫描。

在进行脊髓血管数字减影血管造影(digital subtraction angiogram, DSA)前采用日本Toshiba公司Aquilion One型320排动态容积CT检查,明确大致病变范围及瘘口部位。先作全脊柱CT血管成像(computed tomography angiography, CTA)扫描,再对病变范围作动态容积扫描,然后按时间顺序将动态容积原始数据重建出容积图像,采用图像后处理获得动脉期-静脉期连续动态血管造影图像。

DSA采用德国Siemens公司双平板数字减影血管造影机,运用Seldinger技术穿刺股动脉,根据

CTA检查评估的病变范围作选择性双侧锁骨下动脉、椎动脉、甲状颈干动脉、肋间动脉或腰动脉、髂内动脉造影检查。

2 结果

2.1 临床特点

18例患者中16例以脊髓损害症状为主,表现为肢体无力、单侧或双侧肢体麻木、腰背部疼痛及大小便功能障碍,见表1。1例瘘口位于颈段的患者急性起病,表现为剧烈头痛,最后证实为蛛网膜下腔出血(subarachnoid hemorrhage, SAH);另有1例瘘口位于颈段的患者呈慢性病程,表现为慢性头痛。18例患者中11例(61%)首诊误诊;误诊为脊髓脱髓鞘疾病(ADEM、NMOSD、MS等)6例,并应用甲强龙冲击治疗;误诊为腰间盘突出3例;误诊为周围神经病1例;误诊为偏头痛1例。

2.2 影像学特点

18例患者完善脊髓MRI检查,T₂WI序列均见髓内高信号,脊髓增粗水肿呈斑片状11例(61%),条索状7例(39%);12例(66%)发现脊髓背侧点状、虫蚀状流空血管影。18例患者中14例完善320排动态容积CT检查,其中10例在椎管内发现迂曲、增粗的畸形血管团,评估主要供血动脉及瘘口位置,阳性率为71%;余4例无阳性结果。在术后14 d复查CTA均未发现明显畸形血管团影残留。所有患者均完善脊髓DSA检查,14例(78%)首次DSA检查发现迂曲扩张的引流静脉、供血动脉及瘘口;而4例(22%)在首次DSA检查时为阴性结果,再次复查时发现瘘口。DSA显示瘘口位于颈段4例(22%),胸段9例(50%),腰段5例(27%)。

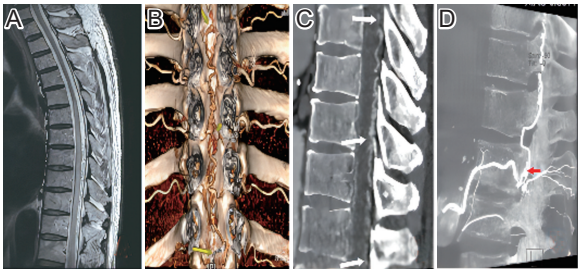
表1 18例SDAVF患者的临床表现

临床表现	病例数[例(%)]
运动功能障碍	14(77)
四肢	2(11)
双下肢	10(55)
一侧肢体	2(11)
感觉功能障碍	16(88)
单侧	1(5)
双侧	15(83)
疼痛	10(55)
腰背疼痛	7(39)
肢体疼痛	1(5)
头痛	2(11)
括约肌功能障碍	10(55)
尿潴留	7(38)
尿失禁	3(17)

2.3 治疗与转归

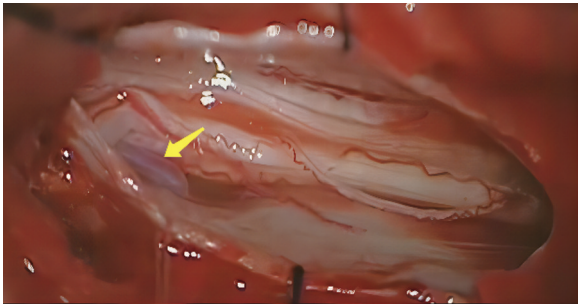
诊断明确后4例患者行微导管介入对供血动脉末端近瘘口处行onxy栓塞术;8例患者行后正中入路椎管内硬脊膜瘘口灼闭术;2例行onxy栓塞术的患者在术后14 d复查CTA复发再次行瘘口灼闭术治疗;另有4例患者放弃治疗;见图1、2。

6个月及12个月后电话随访,在治疗的14名患者中1例患者术后没有明显肌力恢复,余13例患者均在原有基础上肌力恢复1~2级。



注:男性,72岁。腰痛、双下肢渐进性无力14个月。(A)MRI示T₅-T₁₂水平脊髓T₂信号增高,中央管扩张,硬膜下腔虫蚀状短T₂信号。(B、C)CTA示T₈-L₁椎管内畸形血管团影,供血动脉源于左侧腰1动脉的分支。(D)DSA示供血动脉、瘘口及异常增粗的引流静脉,箭头所指为动静脉瘘。

图1 本组1例患者SDAVF影像检查影像



注:黄色箭头示术中可见异常增粗的引流静脉

图2 本组1例患者SDAVF术中所见

3 讨论

SDAVF是一种临床罕见疾病,主要的发病原因不明,近年来大多数学者认为该病是后天多种因素共同作用的结果^[2]。硬脊膜动脉分支在椎间孔处穿过硬脊膜时与脊髓表面静脉之间直接交通,致使髓内正常的动静脉压力梯度紊乱,脊髓静脉回流障碍,脊髓充血,毛细血管瘀滞,最终脊髓缺血坏死。SDAVF好发于中老年男性,本组18例患者中男女比例8:1,比以往报道略高^[1]。

SDAVF根据瘘口部位及引流静脉分布范围的不同,其临床表现可能不同。18例患者中16例临床集中表现为自发性疼痛(腰痛、背痛、单侧或双侧肢体疼痛等),肢体麻木,肌力下降以及大小便功能障碍;并且瘘口位于腰骶段的患者早期就出现了括约肌功能障碍;而瘘口位于颈段另外2例患者,临床表现为慢性头痛及蛛网膜下腔出血。

SDAVF的病程通常进展缓慢,逐步恶化,卧床休息可能会使得症状减轻,而运动、负重、长时间站立以及糖皮质激素的使用会导致病情加重。也有报道^[3]约15%的患者在数小时或几天内出现急性、亚急性发作或症状迅速恶化。本组18例患者中有4例(约22%)呈急性起病;1例颈段SDAVF表现为剧烈头痛,最后影像学及腰穿证实SAH;其余3例在12~19 d内进展迅速,最终出现双侧下肢截瘫、大小便功能障碍,其中1例经影像学证实伴脊髓出血。

隐匿起病的SDAVF,大多无特异性的临床特征,容易被临床医师忽视并误诊为更常见的疾病。延误诊断会导致治疗前症状持续时间延长,脊髓静脉压持续增高,最终导致脊髓缺血坏死等不可逆损伤发生。有研究^[4]认为影响SDAVF患者预后因素,治疗前的症状持续时间和最初的误诊史与SDAVF治疗后的步态改善显著相关。有报道称50%的未经治疗的SDAVF患者在诊断后3年内残疾^[5]。所以早期诊断显得尤为重要。

SDAVF早期诊断主要依据影像学表现。DSA为诊断SDAVF的金标准,但由于DSA耗时长、辐射暴露和造影剂的使用,医师在诊断初期更倾向于选择非侵入性检查方法。在SDAVF的早期诊断中,MRI方便、无创,起到了重要的作用。SDAVF患者的脊髓MRI具有以下特点:①T₂WI在胸腰段可见髓内长节段的(≥3节段)高信号影、脊髓增粗,提示脊髓水肿;部分病例在高信号影内可见低信号影,提示脊髓出血坏死;②T₂WI脊髓背侧可见串珠样、虫蚀样血管流空影,SDAVF的特征性改变;③MRI增强脊髓内可见不规则的片状强化影^[6,7]。T₂WI脊髓高信号和沿脊髓背侧异常流空血管影对SDAVF的诊断具有100%的敏感性和97%的特异性^[6]。医生的临床经验及图像分辨率,是影响到医生发现MRI的这些间接征象的关键^[8]。

320排动态容积CT具有极高的空间分辨率和时间分辨率,能最佳显示脊髓血管,真实再现动脉和静脉血管解剖、走行及形态学变化,从多个角度观察畸形血管,准确评估供血动脉数目,引流静脉多少、流向及粗细迂曲程度,动静脉瘘瘘口位置等^[9]。这对于选择性脊髓DSA检查及介入治疗提供精准的预判,而且术后复查更方便、快捷。

虽然DSA检查是SDAVF诊断的金标准,但假阴性的脊髓

DSA并不少见。本组18例患者中,有4例(22%)首次DSA检查呈现假阴性的结果;3例患者在第2次DSA复查后才发现瘘口;1例患者连续2次DSA检查结果阴性,但结合MRI及CTA检查结果,仍不能排除SDAVF的可能,征得患者家属的同意后行手术探查,最终在胸段发现SDAVF瘘口。所以对于最初的脊髓DSA为阴性,但临床强烈怀疑SDAVF的患者,建议随访脊髓DSA检查^[4]。

总之,要提高SDAVF的早期诊断率需要做到:①提高临床医生对SDAVF认识,对于以肌力下降、感觉障碍、括约肌功能障碍为表现的脊髓损害的患者,当其他疾病不能解释时,警惕到此病的可能;②对于诊断SAH但没有明确原因的患者,应该警惕胸部、背部疼痛和脊髓征象,可能是脊髓SAH的重要突破^[10];③SDAVF首选MRI检查,警惕MRI的间接征象,CTA可以作为SDAVF初筛及术后复查;④对于首次脊髓DSA为阴性,但结合临床不能排除SDAVF的患者,建议随访脊髓DSA检查。

参考文献

[1] Maimon S, Luckman Y, Strauss I. Spinal Dural Arteriovenous Fistula:

A Review[J]. Adv Tech Stand Neurosurg, 2016, 43: 111-137.
[2] Koch C. Spinal dural arteriovenous fistula[J]. Curr Opin Neurol, 2006, 19: 69-75.
[3] Atkinson JL, Miller GM, Krauss WE, et al. Clinical and radiographic features of dural arteriovenous fistula, a treatable cause of myelopathy[J]. Mayo Clin Proc, 2001, 76: 1120-1130.
[4] Ronald AA, Yao B, Winkelman RD, et al. Spinal Dural Arteriovenous Fistula: Diagnosis, Outcomes, and Prognostic Factors[J]. World Neurosurg, 2020, 144: e306-e315.
[5] Flores BC, Klinger DR, White JA, et al. Spinal vascular malformations: treatment strategies and outcome[J]. Neurosurg Rev, 2017, 40: 15-28.
[6] Kralik SF, Murph D, Mehta P, et al. Diagnosis of spinal dural arteriovenous fistula using 3D T2-weighted imaging[J]. Neuroradiology, 2017, 59: 997-1002.
[7] Hunt R, Roberts RM, Mortimer AM. Spinal dural arteriovenous fistula: delay to radiological diagnosis and sources of radiological error[J]. Clin Radiol, 2018, 73: 835.
[8] 杨志勇, 安庆祝, 万海涛, 等. 20例硬脊膜动静脉瘘患者临床特征及影像学特点分析[J]. 中国临床神经科学, 2018, 26: 552-554.
[9] 程少容, 雷继晓, 王鹰, 等. 320排动态容积CT血管造影对硬脊膜动静脉瘘的诊断价值[J]. 介入放射学杂志, 2016, 25: 573-576.
[10] Han J, Cao D, Wang H, et al. Spinal dural arteriovenous fistula presenting with subarachnoid hemorrhage: A case report[J]. Medicine (Baltimore), 2018, 97: e0513.

(本文编辑:唐颖馨)

(上接第451页)

参考文献

[1] Prediger RD, Matheus FC, Schwarzbald ML, et al. Anxiety in Parkinson's disease: a critical review of experimental and clinical studies[J]. Neuropsychopharmacology, 2012, 62: 115-124.
[2] Pfeiffer I. Parkinson's disease and nonmotor dysfunction[M]. 2nd ed. New York: Humana Press, 2013: 17-29.
[3] Hallett M. Transcranial magnetic stimulation: a primer[J]. Neuron, 2007, 55: 187-199.
[4] Ridding MC, Rothwell JC. Is there a future for therapeutic use of transcranial magnetic stimulation[J]? Nat Rev Neurosci, 2007, 8: 559-567.
[5] Khedr EM, Al-Fawal B, Abdel Wraith A, et al. The Effect of 20 Hz versus 1 Hz Repetitive Transcranial Magnetic Stimulation on Motor Dysfunction in Parkinson's Disease: Which Is More Beneficial[J]? J Parkinsons Dis, 2019, 9: 379-387.
[6] Khedr EM, Mohamed KO, Soliman RK, et al. The effect of high-frequency repetitive transcranial magnetic stimulation on advancing Parkinson's disease with dysphagia: double blind randomized clinical trial[J]. Neurorehabil Neural Repair, 2019, 33: 442-452
[7] Zhou L, Guo Z, Xing G, et al. Antidepressant effects of repetitive transcranial magnetic stimulation over prefrontal cortex of Parkinson's disease patients with depression: a meta-analysis[J]. Front Psychiatry, 2019, 9: 769.
[8] Postuma RB, Berg D, Stern M, et al. MDS clinical diagnostic criteria for Parkinson's disease[J]. Mov Disord, 2015, 30: 1591-1601.
[9] Nardone R, Brigo F, Versace V, et al. Cortical afferent inhibition abnormalities reveal cholinergic dysfunction in Parkinson's disease: a reappraisal[J]. J Neural Transm, 2017, 124: 1417-1429.
[10] Takahashi M, Tabu H, Ozaki A, et al. Antidepressants for depression, apathy, and gait instability in Parkinson's disease: a multicenter randomized study[J]. Intern Med, 2019, 58: 361-368.
[11] Pascual-Leone A, Valls-Solé J, Brasil-Neto JP, et al. Akinesia in Parkinson's disease. II. Effects of subthreshold repetitive transcranial motor cortex stimulation[J]. Neurology, 1994, 44: 892-898.
[12] Chou YH, Hickey PT, Sundman M, et al. Effects of repetitive

transcranial magnetic stimulation on motor symptoms in Parkinson disease: a systematic review and meta-analysis[J]. JAMA Neurology, 2015, 72: 432-440.
[13] Hamada M, Ugawa Y, Tsuji S, et al. High-frequency rTMS over the supplementary motor area improves bradykinesia in Parkinson's disease: sub-analysis of double-blind sham-controlled study[J]. J Neurol Sci, 2009, 287: 143-146.
[14] Shirota Y, Ohtsu H, Hamada M, et al. Supplementary motor area stimulation for Parkinson disease: a randomized controlled study[J]. Neurology, 2013, 80: 1400-1405.
[15] 王丽敏, 王丽娟, 黄巧, 等. 低频重复经颅磁刺激对不同亚型帕金森病运动症状的疗效观察[J]. 中华老年心脑血管病杂志, 2015, 17: 841-843.
[16] Braak H, Del Tredici K, Rub U, et al. Staging of brain pathology related to sporadic Parkinson's disease[J]. Neurobiol Aging, 2003, 24: 197-211.
[17] Lu R, Zhang C, Liu Y, et al. The effect of bilateral low-frequency rTMS over dorsolateral prefrontal cortex on serum brain-derived neurotrophic factor and serotonin in patients with generalized anxiety disorder[J]. Neurosci Lett, 2018, 684: 67-71.
[18] Huang Z, Li Y, Bianchi MT, et al. Repetitive transcranial magnetic stimulation of the right parietal cortex for comorbid generalized anxiety disorder and insomnia: A randomized, double-blind, sham-controlled pilot study[J]. Brain Stimul, 2018, 11: 1103-1109.
[19] Rogasch NC, Daskalakis ZJ, Fitzgerald PB. Cortical inhibition of distinct mechanisms in the dorsolateral prefrontal cortex is related to working memory performance: a TMS-EEG study[J]. Cortex, 2015, 64: 68-77.
[20] 万志荣, 王桂华, 陈宇, 等. 帕金森病焦虑患者的临床特征研究[J]. 神经损伤与功能重建, 2020, 15: 14-16.
[21] Chahine LM, Amara AW, Videnovic A. A systematic review of the literature on disorders of sleep and wakefulness in Parkinson's disease from 2005 to 2015[J]. Sleep Med Rev, 2017, 35: 33-50.

(本文编辑:唐颖馨)