

İntrakranyal pial arteriovenöz fistülün prenatal tanısı ve yenidoğan döneminde endovasküler tedavisi

Mert Koroğlu, Barbaros Çil, Ahmet Yeşildağ, Bahattin Baykal, Saruhan Çekirge, Orhan Oyar

Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji Anabilim Dalı (M.K. ✉ mertkoroglu@hotmail.com, A.Y., B.B., O.O.), Isparta; Hacettepe Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji Anabilim Dalı (B.Ç., S.Ç.), Ankara.

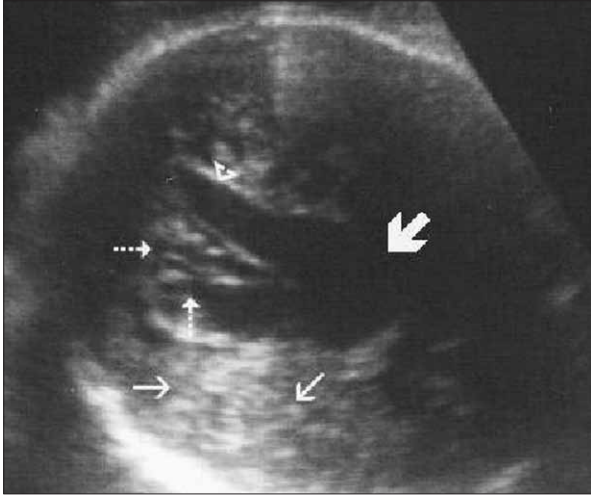
İntrakranyal pial arteriovenöz fistüller özellikle yenidoğanlarda ciddi mortalite ve morbiditeye neden olabilen çok nadir görülen konjenital anomalilerdir. Kranyal arteriovenöz fistüllerin geniş bağlantıları ve artmış akımları vardır. Etiyolojileri bilinmez. Pediatrik arteriovenöz fistüller sıklıkla yenidoğan döneminde ortaya çıkarlar, bu da gelişimsel olduklarını düşündürür (1, 2). Daha çok Galen veni malformasyonu gibi bulgu verirler. Yenidoğanlar genellikle yüksek outputlu kalp yetmezliği ile başvurur. Geniş, persistan sistemik şant nedeniyle medikal tedavi faydasızdır (1). Bu patolojinin acil tanı ve tedavisi oldukça önemlidir (3, 4). Antenatal tanı iyi prognozla ilişkilidir (5, 6). Cerrahi, olguların %80 ila %100'ünde ölüm ile sonuçlanan kötü prognozla birliktedir. Son yıllarda endovasküler yaklaşımla, prognozlar iyileşme göstermiştir (2).

Olgu bildirisi

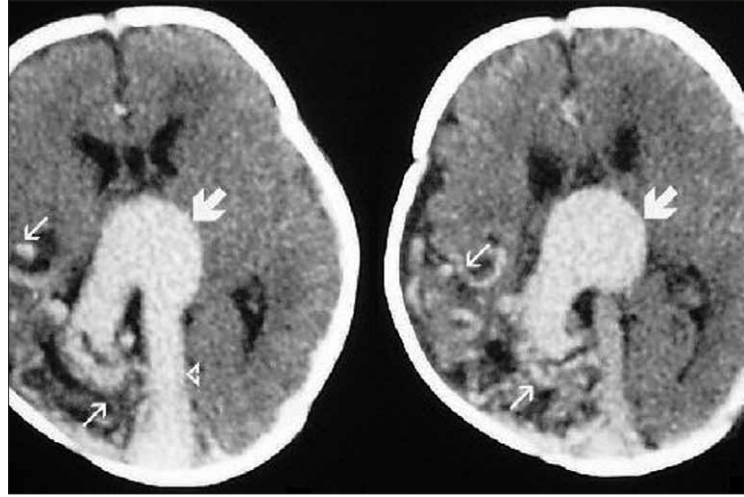
30 yaşındaki kadın olguya gebeliğinin 34. haftasında obstetrik ultrasonografi (US) incelemesi yapıldı. US'de Galen venine drene olan yüksek akımlı pial arteriovenöz fistül ile uyumlu olarak, sağ paryetooksipital lob parankiminde hiperekojen görünüm ile Galen veni ve straight sinüste dilatasyon olduğu saptandı (Şekil 1). Fötal biyometri 34. hafta ile uyumlu idi. Polihidramnion veya hidrops fetalis lehine US bulguları saptanmadı.

Anne, doğum öncesinde endovasküler tedavi olanakları bulunan bir merkeze nakli ve bebeğin kardiyak riskinin azaltılması için önerilen sezaryan doğumu reddetti. Doğumun vajinal yolla sorunsuz olarak gerçekleştirilmesini ve yenidoğanın stabilizasyonunu takiben, kontrastlı kranyal bilgisayarlı tomografi (BT) çekildi. Galen venine drene olan sağ paryetooksipital lob arteriovenöz fistül tanısı konfirme edildi (Şekil 2). BT'de ek olarak, Galen veni ve straight sinüsün dilatasyonu, sağ paryetooksipital lobun atrofisi ve yaygın iskemik lezyon tespit edildi.

Olgu tedaviye dirençli konjestif kalp yetmezliği nedeniyle endovasküler tedavi olanakları bulunan bir merkeze sevk edildi. Genel anestezi altında perkütan yolla umbilikal arterin kateterizasyonunu takiben tanısal serebral anjiyografi ve endovasküler tedavi yapıldı. Hem karotid hem de posterior serebral dolaşımdan beslenen ve Galen venine drene olan arteriovenöz fistül saptandı (Şekil 3). Sağ anterior ve posterior serebral arterlerden orjin alan multipl besleyici damarlar



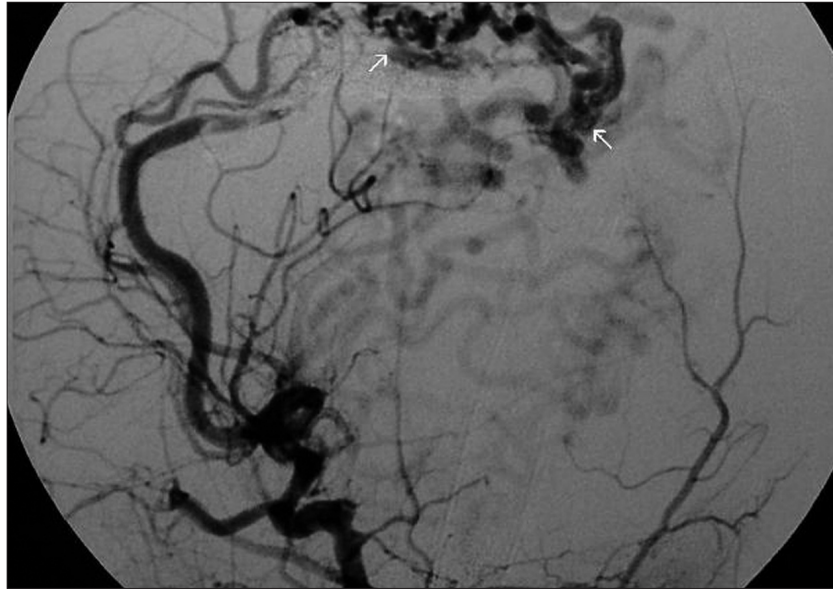
Şekil 1. Obstetrik US incelemede Galen venine drene olan yüksek akımlı intrakraniyal pial arteriovenöz fistül görülmekte (*kesikli oklar*). Sağ paryetooksipital lobun hiperekojen parankimi (*ince oklar*), Galen veninin (*kalın ok*) ve straight sinüsün (*ok başı*) dilatasyonu görülmekte.



Şekil 2. Postnatal kontrastlı BT incelemede Galen venine drene olan sağ paryetooksipital arteriovenöz fistül (*oklar*), Galen veninin (*kalın oklar*) ve straight sinüsün (*ok başı*) dilatasyonu, sağ paryetooksipital atrofi ve iskemi görülmekte.



Şekil 3. Sol karotid arter anjiogramında Galen venine (*kalın ok*) drene olan arteriovenöz fistül (*oklar*) görülmekte. Straight sinüs de görülmekte (*ok başı*).



Şekil 4. Postembolizasyon anjiografi arteriovenöz fistülün (*oklar*) tama yakın oklüzyonunu göstermekte.

mikrokaterlerle kateterize edildi ve iodize oil (Lipiodol) ile dilüe edilmiş N-butyl 2-cyanoacrylate (NBCA) (Histoacryl, B/Braun, Melsungen, Germany) kullanılarak embolize edildi. NBCA/lipiodol oranı 1:1 idi. Toplamda 2 ml karışım sağ anterior serebral arterin distal perikallosal dalından ve sağ posterior serebral arterin dalı olan sağ posterior koroidal arterden enjekte edildi. İşlem sırasında 100 U/kg'dan İV bolus heparin enjeksiyonuyla antikoagülasyon sağlandı. Aktive pıhtılaşma zamanını (ACT) 300 sn civarında tutmak için

ek heparin dozları verildi. İşlemden hemen sonra heparin stoplandı. Embolizasyon yapıldığında olgu henüz 2 günlüktü. Postembolizasyon anjiogramları arteriovenöz fistülün hemen tamamen oblitere olduğunu gösterdi (Şekil 4). Geniş, multipl arteriyel besleyicilerin bulunması sebebiyle venöz girişim tercih edilmedi. Umbilikal arterin kolayca kateterize edilmesi de arteriyel yolun seçilmesine neden oldu. İşlemden 1 ay sonra elde olunan kontrol kranyal BT incelemede oklüde arteriovenöz fistül ve obstrüktif hidrosefali saptandı.

Dirençli hidrosefali nedeniyle ventriküloperitoneal şant yerleştirildi. Olgu 20 aylık iken kalp yetmezliği bulgusu yoktu ancak nörolojik gelişme geriliği mevcuttu.

Tartışma

İntrakraniyal pial arteriovenöz fistüller literatürde 90'dan daha az olguda bildirilmiş nadir rastlanan vasküler lezyonlardır (7). Sıklıkla Galen veninde anevrizmal dilatasyona yol açan orta hat venöz sisteminde artmış kan akımıyla ilişkilidirler (1, 8, 9). Yayınlanmış olgularda, arteriovenöz

fistüllerin prenatal tanısı genellikle 3. trimesterde konmuştur (8, 10). Temel ayırıcı tanı Galen veninin anevrizmal malformasyonudur (GVAM). Lasjanias ve arkadaşları GVAM'ı Galen veninin anevrizmal dilatasyonundan (GVAD) ayırmışlardır (11). GVAD'lar Galen venine drene olan parankimal arteriovenöz malformasyona sahiptir. Ayırıcı tanıda fetal beynin araknoid kist, koroid pleksus kistleri, koroid papillomları, porensel kistler, pineal tümörler gibi kistik lezyonları ve intraserebral hematomlar düşünülmelidir (8).

US ve renkli doppler US'nin yaygın kullanımıyla birlikte dilate venlerin ve türbülant akımlı arteriovenöz şantların gösterilmesiyle bu vasküler anomalilerin intrauterin tanısı konabilmektedir (1-5). Prognostik kriterlere odaklanmış bazı çalışmalara göre, prenatal dönemde kardiyak dekompanzasyon bulguları ortaya çıktığında perinatal prognoz mutlaka etkilenmektedir (5, 6).

Doğum esnasında, kan akımının plasenta gibi düşük dirençli bir alana yönelmesiyle hemodinamik dekompanzasyon, kalp yetmezliği ve ölüme neden olabilecek şekilde intrakranyal şant artacaktır (8). Malformasyondan şant eden ve beyin parankiminden uzaklaşan kanın hacmine bağlı olarak beyin hasarı oluşabilir. Çalma fenomeni olarak adlandırılan bu kan akımının redireksiyonu sonuçta beyin iskemisine yol açar (12).

Bu anomali ile ilişkili morbidite ve mortalitelerin çoğunluğu yenidoğan döneminde izlenen kalp yetmezliğine bağlıdır. Arteriovenöz malformasyonlu yenidoğanlarda kardiyomegalinin sıklıkla bulunması, olguların önemli bir bölümünde henüz 3. trimesterde dahi yüksek outputlu kalp yetmezliğinin bulunduğunu düşündürmelidir (13). Bir arteriovenöz malformasyon prenatal olarak yakalanacak kadar büyük ise, antenatal dönemde veya doğumdan hemen sonra kalp yetmezliğine neden olması daha olasıdır (1). Prenatal dönemde tanı almış olgularda prognoz daha kötüdür (8, 14). Bu patoloji değişik şekillerde prezente olabilir. Yenidoğanlar kalp yetmezliği

ve intrakranyal hasar ile gelebilir. Bebeklikte hidrosefali ve nöbetler olabilir. Daha büyük çocuklar veya genç erişkinlerde intrakranyal kanama oluşabilir (1).

Endovasküler tekniklerin gelişmesi nedeniyle arteriovenöz fistülü bulunan yenidoğanların prognozu önemli derece iyileşmiştir. Arteriovenöz fistülü ve kalp yetmezliği bulunan en yüksek riskli yenidoğanlarda dahi modern nöroanestezik ve nörointensif bakım ile beraber yapılan endovasküler tedavi ile iyi sonuçlar alınabilir. Kalp yetmezliği sadece ilaç tedavisi ile çok nadiren kontrol edilebilir. Kalp yetmezliğinin medikal tedavisi başarısız ise ve görüntüleme belirgin beyin parankimi hasarı yok ise, acil endovasküler tedavi faydalıdır ve mortaliteyi azaltabilir (3, 15). Transarteryel embolizasyon tercih edilen tekniktir ve sadece 1 veya sınırlı sayıda arteriyel pedikül varlığında kalp yetmezliğini kontrolde daha etkindir (16, 17). Çok sayıda küçük arteriyel besleyicinin varlığında, durumu stabil olmayan yenidoğanda bunların 1 veya 2'sinden fazlasının oklüzyonu imkansızdır. Bu durumda, transvenöz embolizasyon uygulanabilir. Transvenöz yaklaşım çok defa kolayca tekrarlanabilir ve transarteryel embolizasyonla desteklenebilir. Sonografi eşliğinde perkütan transtörküler embolizasyon da bildirilmiştir (2). Nihai amaç fistülün tamamen kapatılması olsa da, parsiyel oklüzyon da kalp fonksiyonları-

nın iyileşmesi için oldukça faydalıdır (1, 2, 18, 19).

Umbilikal kateterizasyon en sık enfeksiyon ve tromboz olmak üzere bazı komplikasyonlarla ilişkilidir. Kısa dönemli kateterizasyon nedeniyle olgumuzda bu komplikasyonlar gözlenmedi (20). Klinik muayeneye ek olarak, kontrol protokolünde BT ve anjiografinin de bulunması gerektiğine inanmaktayız. BT, olgumuzda olduğu gibi hidrosefaliyi ve parankim değişikliklerini gösterebilir. Anjiyografi ise oklüzyonun konfirmasyonu veya fistülün patent olduğunu göstermek için gereklidir.

Girişimsel radyologların becerilerindeki gelişmeler, embolizasyon tekniklerinin ve araçlarının gelişmesi ve endovasküler prosedürlerin invazif olmayan doğası nedenleriyle cerrahinin rolü azalmıştır (1, 2). Yine de girişimsel teknikler besleyici damarlara ulaşamadığında ya da anlamlı sayıda damarı oklüde edemediğinde cerrahi kipleme endike olabilir (21).

Arteriovenöz fistülü bulunan yenidoğanın tedavisi halen tartışmalıdır ve en iyi, sinerji halinde çalışan girişimsel nöroradyolog, beyin cerrahisi, neonatolog ve anesteziyologun oluşan multidisipliner bir takımla yapılabilir (2).

Sonuç olarak, yüksek morbidite ve mortalitesi nedeniyle bu patolojinin acil tanı ve tedavisi oldukça önemlidir. Endovasküler teknikler bu olgularda güvenli ve başarılı tedavi sağlayabilir.

PRENATAL DIAGNOSIS OF INTRACRANIAL PIAL ARTERIOVENOUS FISTULA AND ENDOVASCULAR TREATMENT DURING THE NEONATAL PERIOD

ABSTRACT

We present a case with prenatal diagnosis of an intracranial high-flow pial arteriovenous fistula that was draining into the vein of Galen in the third trimester of pregnancy. The child was treated by transcatheter embolization with N-butyl 2-cyanoacrylate (NBCA) via the umbilical artery in the early neonatal period due to intractable cardiac failure. Hydrocephalus developed and a ventriculoperitoneal shunt was placed. At the time this report was prepared, the patient was 20 months old and without cardiac failure, but with a delay in neurological development. Prenatal diagnosis and endovascular treatment in the early neonatal period is important in preventing heart failure and resultant mortality due to such high-flow vascular malformations. To the best of our knowledge, the combination of prenatal diagnosis of an intracranial high-flow pial arteriovenous fistula draining into the vein of Galen and endovascular treatment in the early neonatal period is presented here for the first time.

Key words: • arteriovenous fistula • ultrasonography • prenatal diagnosis • interventional procedures

Diagn Interv Radiol 2006; 12:64-67

Kaynaklar

1. Meyers PM, Halbach VV, Barkovich AJ. Anomalies of cerebral vasculature: diagnostic and endovascular considerations. In: Barkovich AJ, ed. Pediatric neuroimaging. 3rd ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins, 2000; 777-796.
2. Mitchell PJ, Rosenfeld JV, Dargaville P, et al. Endovascular management of vein of Galen aneurysmal malformations presenting in the neonatal period. *Am J Neuroradiol* 2001; 22:1403-1409.
3. Doren M, Tercanli S, Holzgreve W. Prenatal sonographic diagnosis of a vein of Galen aneurysm: relevance of associated malformations for timing and mode of delivery. *Ultrasound Obstet Gynecol* 1995; 6:287-289.
4. Has R, Gunay S, Ibrahimoglu L. Prenatal diagnosis of a vein of Galen aneurysm. *Fetal Diagn Ther* 2003; 18:36-40.
5. Yamashita Y, Abe T, Ohara N, et al. Successful treatment of neonatal aneurysmal dilatation of the vein of Galen: the role of prenatal diagnosis and trans-arterial embolization. *Neuroradiology* 1992; 34:457-459.
6. Chisholm CA, Kuller JA, Katz VL, McCoy MC. Aneurysm of the vein of Galen: prenatal diagnosis and perinatal management. *Am J Perinatol* 1996; 13:503-506.
7. Wang YC, Wong HF, Yeh YS. Intracranial pial arteriovenous fistulas with single-vein drainage. Report of three cases and review of the literature. *J Neurosurg Spine* 2004; 10:201-205.
8. Sepulveda W, Platt CC, Fisk NM. Prenatal diagnosis of cerebral arteriovenous malformation using color Doppler ultrasonography: case report and review of the literature. *Ultrasound Obstet Gynecol* 1995; 6:282-286.
9. Vinuela F, Drake CG, Fox AJ, Pelz DM. Giant intracranial varices secondary to high-flow arteriovenous fistulae. *J Neurosurg* 1987; 66:198-203.
10. Paladini D, Palmieri S, D'Angelo A, Martinelli P. Prenatal ultrasound diagnosis of cerebral arteriovenous fistula. *Obstet Gynecol* 1996; 88:678-681.
11. Lasjaunias P, Hui F, Zerah M, et al. Cerebral arteriovenous malformations in children. Management of 179 consecutive cases and review of the literature. *Childs Nerv Syst* 1995; 11 66-79.
12. Henrich W, Fuchs I, Buhner C. Isolated cardiomegaly in the second trimester as an early sign of fetal hydrops due to intracranial arteriovenous malformation. *J Clin Ultrasound* 2003; 31:445-449.