Вопросы нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко
2020, №3, с. 97-101
https://doi.org/10.17116/neiro20208403197

Burdenko's journal of neurosurgery
2020, №3, pp. 97-101
https://doi.org/10.17116/neiro20208403197

Прямое спонтанное высокопоточное каротидно-кавернозное соустье у ребенка 9 месяцев, развившееся после пластики слезного канала

© А.С. НИКОЛАЕВ, А.В. ДУБОВОЙ, Т.К. ИСТОМИНА

ФГБУ «Федеральный центр нейрохирургии» Минздрава России, Новосибирск, Россия

РЕЗЮМЕ

В статье представлен случай успешного лечения прямого спонтанного каротидно-кавернозного соустья (ККС) у ребенка 9 месяцев, а также обзор наблюдений этой патологии у пациентов детского возраста. Развитие спонтанного высокопоточного ККС у детей наблюдается крайне редко. Методы диагностики этой патологии включают мультиспиральную компьютерную томографию сосудов и церебральную субтракционную ангиографию. Предшествующие хирургические манипуляции, в данном случае вмешательство по поводу врожденной патологии носослезного канала, могут рассматриваться в качестве этиологического фактора развития ККС. Выполнение трансартериальной трансфеморальной эндоваскулярной эмболизации соустья микроспиралями позволило нам устранить патологическое соустье и добиться полного регресса клинических проявлений.

Ключевые слова: каротидно-кавернозное соустье, спонтанное соустье, пластика слезного канала, эндоваскулярная эмболизация, детский возраст.

ИНФОРМАЦИЯ ОБ АВТОРАХ:

Николаев А.С. — https://orcid.org/0000-0003-3417-5805; e-mail: niktandr76@mail.ru
Дубовой А.В. — https://orcid.org/0000-0002-0927-2841
Истомина Т.К. — https://orcid.org/0000-0003-4856-0042
Автор, ответственный за переписку: Николаев А.С. — e-mail: niktandr76@mail.ru

КАК ЦИТИРОВАТЬ:

Николаев А.С., Дубовой А.В., Истомина Т.К. Прямое спонтанное высокопоточное каротидно-кавернозное соустье у ребенка 9 месяцев, развившееся после пластики слезного канала. *Вопросы нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко*. 2020;84(3):97–101. https://doi.org/10.17116/neiro20208403197

Direct spontaneous high-flow carotid-cavernous fistula in a 9-month-old child after nasolacrimal duct repair

© A.S. NIKOLAEV, A.V. DUBOVOY, T.K. ISTOMINA

Federal Center for Neurosurgery, Novosibirsk, Russia

ABSTRACT

Successful treatment of direct spontaneous carotid-cavernous fistula in a 9-month-old child and review of the literature devoted to this issue are reported in the manuscript. Spontaneous high-flow carotid-cavernous fistula is extremely rare in children. Detailed diagnosis of the fistulae includes CT-angiography and cerebral subtraction angiography. Previous surgeries (nasolacrimal canal repair in this case) may be considered as an etiological factor of carotid-cavernous fistula. Transarterial transfemoral endovascular embolization of the fistula with microcoils ensured closure of abnormal communication and complete regression of clinical manifestations in our case.

Keywords: carotid-cavernous fistula, spontaneous fistula, lacrimal canal repair, endovascular embolization, childhood.

INFORMATION ABOUT THE AUTHOR:

Nikolaev A.S. — https://orcid.org/0000-0003-3417-5805; e-mail: niktandr76@mail.ru
Dubovoy A.V. — https://orcid.org/0000-0002-0927-2841
Istomina T.K. — https://orcid.org/0000-0003-4856-0042
Corresponding author: Nikolaev A.S. — e-mail: niktandr76@mail.ru

TO CITE THIS ARTICLE:

Nikolaev AS, Dubovoy AV, Istomina TK. Direct spontaneous high-flow carotid-cavernous fistula in a 9-month-old child after nasolacrimal duct repair. *Burdenko's Journal of Neurosurgery = Zhurnal voprosy neirokhirurgii im. N.N. Burdenko*. 2020;84(3):97–101. (In Russ.). https://doi.org/10.17116/neiro20208403197

Список сокращений

ККС — каротидно-кавернозное соустье
МСКТ-ангиография — мультиспиральная компьютерная томография сосудов
МР-ангиография — магнитно-резонансная томография сосудов
ВСА — внутренняя сонная артерия

КС — кавернозный синус
НСА — наружная сонная артерия
ДАВФ — дуральная артериовенозная фистула

Врожденное спонтанное прямое каротидно-кавернозное соустье (ККС) в детском и младенческом возрасте встречается крайне редко. В подавляющем большинстве случаев высокопоточное ККС является следствием черепно-мозговой травмы. В статье представлен успешный случай эндоваскулярного лечения прямого спонтанного ККС у ребенка 9 мес, а также приведен обзор наблюдений этой патологии у пациентов детского возраста.

Клинический случай

Из анамнеза известно, что ребенок родился от третьей беременности, роды третьи, естественные, срочные, в 39 недель. Вес при рождении — 4100 г. Оценка состояния ребенка по шкале Апгар составила 8—9 баллов. Находился на естественном вскармливании. Черепно-мозговой травмы, наследственных заболеваний и болезней соединительной ткани не было.

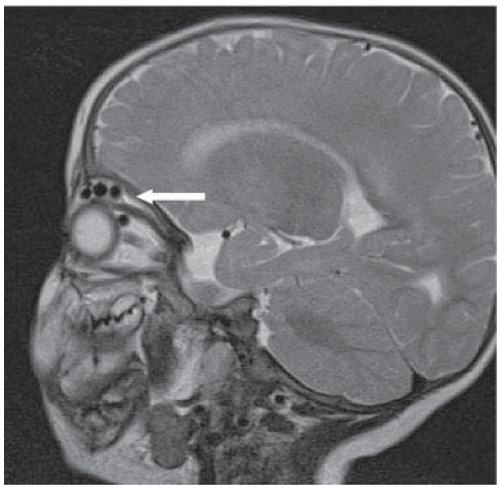
В возрасте 3 мес родители отметили стояние слезы в левом глазу. Пациенту проведена контрастная дакриоцистография слева. Контрастированы слезный мешок и верхний отдел вертикального отрезка слезно-носового канала. В носовую полость контраст не поступал. Попытки промывания носослезного канала были безрезультатными. При отсутствии положительной динамики 08.08.17 проведено зондирование слезно-носового канала, которое также оказалось неэффективным. В плановом порядке вновь предпринята попытка оперативного лечения: 22.08.17 выполнена лазерная реконструкция слезно-носового канала слева с бужированием. Через 3 нед буж (леска) самостоятельно удалился. Ожидаемый эффект операции не был достигнут. При контрольном осмотре офтальмологом рекомендовано наблюдение в динамике в течение 1 мес. С октября 2017 г. впервые появились жалобы на отек левого века, отечность конъюнктивы, появление невыраженного венозного рисунка на коже век и лица. При обследовании офтальмологом данных о нарушении целостности орбиты слева не обнаружено. В дальнейшем отмечена отрицательная динамика: в декабре 2017 г. появились экзофтальм слева, извитость вен обоих век и левой верхней половины лица, усилилась гиперемия конъюнктивы слева.

При магнитно-резонансной томографии сосудов (МР-ангиографии) в параселлярной области слева определялось патологическое расширение левого кавернозного синуса, выявлены патологически расширенные извитые венозные сосуды в проекции левой орбиты **(рис. 1, а, б)**.

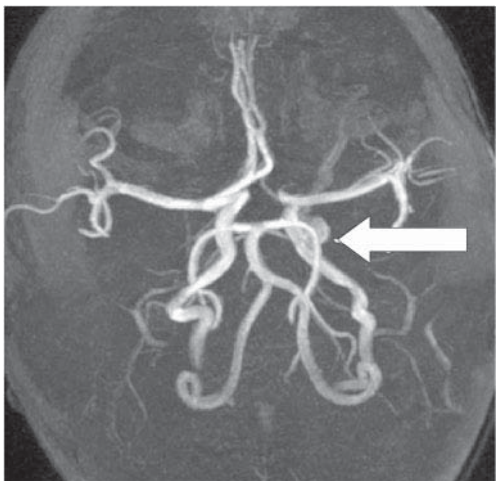
При мультиспиральной компьютерной томографии сосудов (МСКТ-ангиография) обнаружено соустье между кавернозным сегментом левой внутренней сонной артерии (ВСА) и кавернозным синусом (КС). Размеры кавернозного синуса — 9×8×6 мм. Отмечалось расширение вен левой орбиты и медиобазальных отделов левой височной доли **(рис. 2, а, б)**.

При селективной церебральной ангиографии определяется прямое высокопоточное ККС типа А по D. Barrow [1] со сбросом крови преимущественно в верхнюю глазничную вену **(рис. 3)**.

Методом выбора лечения ККС у ребенка явилась трансфеморальная трансартериальная эндоваскуляр-



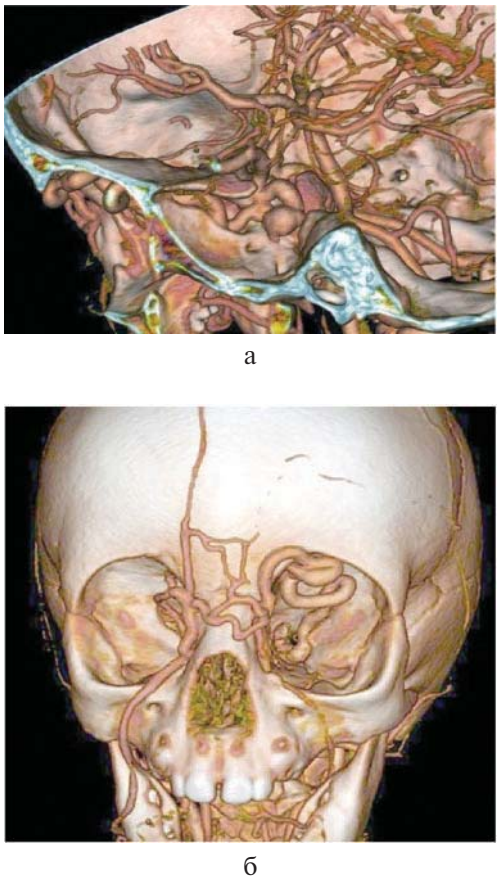
а



б

Рис. 1. **Магнитно-резонансное томографическое исследование до операции.**

а — магнитно-резонансная томограмма головного мозга (стрелкой указана расширенная верхняя офтальмическая вена в левой орбите); б — магнитно-резонансная томограмма в режиме 3D TOF (стрелкой указана расширенная вена в проекции кавернозного синуса слева).



а

б

Рис. 2. **Мультиспиральная компьютерная томография сосудов до операции.**

а — мультиспиральная компьютерная томография интракраниальных сосудов, видна расширенная верхняя офтальмическая вена в области кавернозного синуса слева; б — мультиспиральная компьютерная томография экстракраниальных сосудов, видна патологически расширенная верхняя офтальмическая вена с множественными анастомозами.

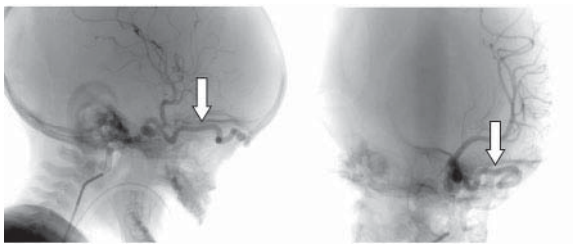


Рис. 3. **Селективная церебральная ангиография до операции, прямая и боковая проекции.**

Стрелками указана расширенная верхняя офтальмическая вена.

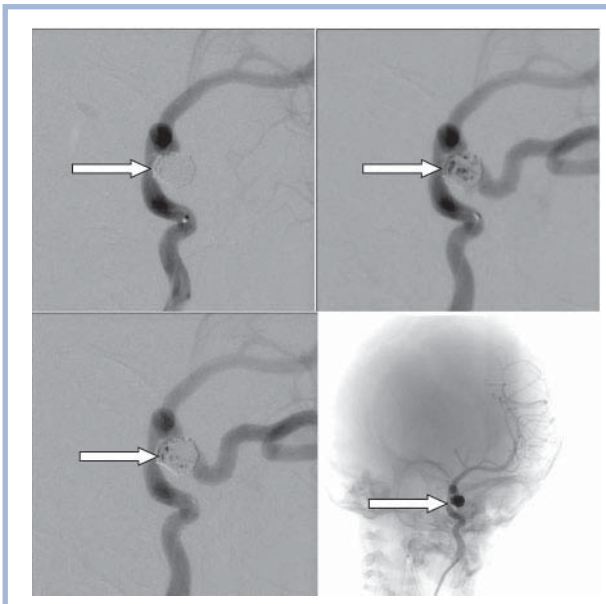


Рис. 4. **Этапы эндоваскулярной операции — последовательная укладка микроспиралей в область фистулы.**

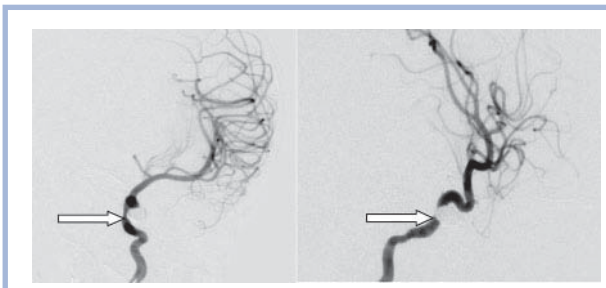


Рис. 5. **Прямая селективная церебральная ангиография по окончании операции.**

Стрелкой указаны уложенные в полость соустья микроспирали.

ная эмболизация кавернозного синуса микроспиралями. Этот метод оперативного лечения определен оперирующим хирургом. Вмешательство проводилось в условиях эндотрахеального наркоза. В полость аневризмы последовательно было уложено 9 микроспиралей **(рис. 4)**. На контрольных ангиограммах соустье не контрастировалось, была сохранена проходимость магистральных сосудов **(рис. 5)**. В раннем и позднем послеоперационных периодах отмечен регресс клинических проявлений ККС **(рис. 6, 7)**.

К особенностям описанного случая можно отнести указание на аналогичную патологию — врожденную обструкцию носослезного канала у родного старшего брата пациента. Заболевание излечено в 3-месячном возрасте. Клинических проявлений ККС у старшего брата не было.

Обсуждение

Патологическое сообщение между КС и интракавернозным отделом ВСА — каротидно-кавернозное соустье — классифицируют по D. Barrow на 4 типа (A, B, C, D) [1]. Тип А представляет собой высокопоточный тип соустья с прямым шунтированием через дефект стенки ВСА. Остальные варианты представлены непрямым шунтированием из оболочечных ветвей ВСА и/или наружной сонной артерии (НСА) в кавернозный синус, объединенных под од-



Рис. 6. **Вид ребенка на 2-е сутки после операции — умеренный отек верхнего века слева.**



Рис. 7. **Вид ребенка через 3 недели после операции — асимметрия глазных шелей и отек век отсутствуют.**

ним названием — дуральные артериовенозные фистулы (ДАВФ) в КС. Среди спонтанных фистул наиболее часто встречаются именно ДАВФ.

Подавляющее большинство прямых фистул имеет травматический генез и чаще возникает у молодых мужчин. Спонтанные ККС типа А в целом выявляются редко, а у пациентов детского возраста — крайне редко. В литературе встречаются единичные сообщения о случаях врожденных соустий в кавернозном синусе, в особенности типа А по D. Barrow. Одно из первых упоминаний этой патологии имеется в сборнике «Анналы хирургии» в 1924 г. [2]. Авторы описывают случаи возникновения спонтанного экзофтальма у 38 пациентов, двое из которых были детского возраста, что составило 5,3%. В одном случае у мальчика 13 лет внезапно развился правосторонний пульсирующий экзофтальм, появились головная боль, рвота, хемоз и расширение вен век. На глазном дне — отек и размытость границ диска зрительного нерва. Пациенту проведена операция в объеме перевязки правой ВСА и правой наружной яремной вены. Этот случай закончился летальным исходом на 9-е сутки. На аутопсии верифицирована артериовенозная фистула между кавернозным синусом и кавернозным сегментом ВСА. У другого пациента 5 лет развился спонтанный билатеральный пульсирующий экзофтальм. Лечение компрессией сонных артерий не увенчалось успехом. Пациенту произведено лигирование левой сонной артерии, также без эффекта. Дальнейшая судьба пациента не описана. Неясно, какие из вариантов фистул были у описанных пациентов.

A. Biglan и соавт. (1981) описали более 30 случаев спонтанных ККС, из них 1 пациент — младенец в возрасте 7 нед с ДАВФ в КС [3]. Y. Konishi и соавт. (1990) представили 12 случаев ККС у детей различного возраста, среди которых не было ни одного случая прямой фистулы [4].

В работе С.Б. Яковлева и соавт. (2008) проведен анализ наблюдения и лечения 358 пациентов с прямыми ККС [5]. Среди них у 317 (88,5%) пациентов фистулы имели травматический генез, у 38 (10,6%) наблюдались спонтанные соустья, в том числе у 1 (0,3%) ребенка — врожденное соустье. Всего в доступной нам литературе найдено описание у детей 4 случаев прямого спонтанного ККС типа А по D. Barrow [2, 6—8].

M. Gossman и соавт. (1993) впервые описали случай возникновения спонтанного ККС типа А по D. Barrow у ребенка 5 лет [6]. Авторы применили комбинированный метод лечения. На первом этапе произведена окклюзия КС отделяемым баллон-катетером, которая не привела к тотальному выключению фистулы из кровотока. На втором этапе дополнительно проведено клипирование интракраниальной части левой ВСА проксимальнее отхождения левой глазной артерии, а экстракраниальная часть левой ВСА эмболизирована мышцей и лигирована.

Случай прямого спонтанного ККС типа А по D. Barrow у ребенка 11 мес, развившегося после хирургического лечения врожденной обструкции носослезного канала, описан T. Ansaar и соавт. [7]. В результате эндоваскулярного лечения фистула полностью закрыта. Примечательно, что авторы, как и мы, не связывают предшествующее хирургическое лечение патологии носослезного канала с развитием прямого ККС. Трансартериальный доступ при эндоваскулярном лечении ККС используется наиболее широко, однако G. Mercado и соавт. (2011) для эмболизации прямого спонтанного ККС у 3-летнего пациента выбрали трансвенозный доступ [8]. Авторы отметили, что трансвенозное эндоваскулярное разобщение ККС так же безопасно и эффективно, как и трансартериальное.

Заключение

Спонтанное прямое каротидно-кавернозное соустье в детском возрасте встречается крайне редко. Несмотря на отсутствие доказательств о связи формирования соустья с предшествующим оперативным устранением обструкции слезного канала, желательно динамическое наблюдение за пациентами с этой патологией для своевременной диагностики каротидно-кавернозного соустья и выполнение ангиографического обследования при развитии соответствующей клинической картины. Методом выбора лечения такой патологии на сегодняшний день яв-

ляется эндоваскулярное вмешательство — разобщение каротидно-кавернозного соустья с использованием микроспиралей.

Участие авторов
Концепция и дизайн исследования — А.Д.
Сбор и обработка материала — А.Н., Т.И.
Написание текста — А.Н.
Редактирование — А.Д.

Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

The authors declare no conflicts of interest.

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

1. Barrow DL, Spector RH, Braun IF, Landman JA, Tindall SC, Tindall GT. Classification and treatment of spontaneous carotidcavernous fistulas. *Journal of Neurosurgery*. 1985;62(2):248-256. https://doi.org/10.3171/jns.1985.62.2.0248
2. Locke CE. Intracranial arterio-venous aneurysm or pulsating exophthalmos. *Annals of Surgery*. 1924;80(1):1-24. https://doi.org/10.1097/00000658-192480010-00001
3. Biglan AW, Pang D, Shuckett EP, Kerber C. External carotid-cavernous fistula in an infant. *American Journal of Ophthalmology*. 1981;91(3):351-356. https://doi.org/10.1016/0002-9394(81)90289-0
4. Konishi Y, Hieshima GB, Hara M, Yoshino K, Yano K, Takeuchi K. Congenital fistula of the dural carotid-cavernous sinus: case report and review of the literature. *Neurosurgery*. 1990;27(1):120-126. https://doi.org/10.1097/00006123-199007000-00018
5. Яковлев С.Б., Бочаров А.В., Бухарин Е.Ю., Арустамян С.Р., Архангельская Я.Н. Прямые каротидно-кавернозные соустья: клиническая картина, ангиоархитектоника и эндоваскулярное лечение. *Вопросы нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко*. 2008;4:3-11.
Yakovlev SB, Bocharov AV, Bukharin EYu, Arustamyan SR, Arhangel'skaya YaN. Direct carotid-cavernous anastomoses: clinical picture, angioarchitectonics and endovascular treatment. *Voprosy nejrohirurgii imeni N.N. Burdenko*. 2008;4:3-11. (In Russ.).
6. Gossman MD, Berlin AJ, Weinstein MA, Hahn J, Price RL. Spontaneous direct Carotid-cavernous fistula in childhood. *Ophthalmic Plastic and Reconstructive Surgery*. 1993;9(1):62-65. https://doi.org/10.1097/00002341-199303000-00010
7. Ansaar TR, Sivak-Callcott JA, Larzo C, Marano GD. Direct Carotid Cavernous Fistula in Infancy: Presentation and Treatment. *AJNR: American Journal of Neuroradiology*. 2004;25(6):1083-1085.
8. Mercado GB, Irie K, Negoro M, Moriya S, Tanaka T, Ohmura M, Sadato A, Hayakawa M, Sano H. Transvenous embolization in spontaneous direct carotid-cavernous fistula in childhood. *Asian Journal of Neurosurgery*. 2011;6(1):45-48. https://doi.org/10.4103/1793-5482.85637

Поступила 01.04.19
Received 01.04.19
Исправленный вариант 20.01.20
Принята к печати 28.02.20
Accepted 28.02.20

Комментарий

В статье представлен крайне редкий случай формирования прямой каротидно-кавернозной фистулы у ребенка 9 мес после хирургических манипуляций на носослезном канале. В литературе по вопросу формирования нетравматических прямых артериовенозных фистул у детей имеются крайне скудные сведения, что делает данное наблюдение уникальным. Авторами сформирован адекватный комплекс предоперационного обследования пациента, что позволило своевременно установить правильный диагноз. Выбрана тактика эндоваскулярного лечения каротидно-кавернозного соустья. Следует отметить, что у детей в условиях растущего организма предпочтительно выполнять именно реконструктивные операции на магистральных сосудах головного мозга. С применением трансартериального доступа выполнена окклюзия префистульного отдела кавернозного синуса микроспиралями, что позволило сохранить просвет внутренней сонной артерии и выключить соустье из кровотока. Наблюдение прекрасно иллюстрировано как клиническими данными, так и результатами нейровизуализационных исследований.

В статье авторы обсуждают ключевой вопрос о связи манипуляций на носослезном канале как этиологического фактора с формированием фистулы. В литературе описаны различные причины формирования спонтанных каротидно-кавернозных соустий. К ним относятся состояния, при которых имеется «слабость» сосудистой стенки. Это различные виды коллагенопатий, фибромускулярная дисплазия, разрыв аневризмы кавернозного отдела. О некотором неблагополучии состояния сосудов головного мозга у данного ребенка можно косвенно судить по наличию гипертрофии средней мозговой артерии, которая четко просматривается на исходных ангиограммах. Ее калибр практически соответствует калибру внутренней сонной артерии. Менее вероятно, но нельзя исключить и разрыв небольшой аневризмы кавернозного сегмента внутренней сонной артерии, хотя верифицировать этот факт невозможно в условиях уже функционирующего соустья. Таким образом, связать формирование каротидно-кавернозного соустья с манипуляциями на носослезном канале, которые никак не могли затрагивать образования орбиты или основания черепа, не представляется возможным, и следует согласиться с мнением T.R. Ansaar и соавт., на которое ссылаются авторы.

Что касается вопроса об использовании трансартериального или трансвенозного доступа при лечении каротидно-кавернозного соустья, то это зависит от локализации и формы дефекта стенки внутренней сонной артерии, особенностей анатомии кавернозного синуса и состояния путей оттока из него. Так или иначе, вне зависимости от доступа и использованных эндоваскулярных имплантатов, цель операции — окклюзировать фистулу со стороны кавернозного синуса и сохранить просвет внутренней сонной артерии. В наиболее сложных случаях можно использовать комбинированный доступ.

Авторов можно поздравить с выполнением успешной операции у столь маленького пациента, а описанный случай добавит в копилку знаний сведения о возможностях эндоваскулярного лечения сосудистой патологии у детей.

С.Б. Яковлев (Москва)