

## 颅内硬脑膜动静脉瘘临床特点与预后分析

张学智, 赖凌峰, 陈岩, 魏敏俊, 张倩闻, 江志群\*

南昌大学第一附属医院神经外科, 江西 南昌 330006

**摘要:**目的 分析颅内硬脑膜动静脉瘘的临床特征并探讨其预后的相关因素。方法 纳入南昌大学第一附属医院神经外科2012年3月—2019年9月期间收治48例硬脑膜动静脉瘘(DAVF)患者。以性别、年龄、供血动脉数、皮质静脉引流、瘘口位置、治疗方式及颅内出血作为亚变量进行回顾性分析。在患者出院6个月后,通过门诊及电话,对其进行随访。最后,对收集的数据进行Logistic回归分析。结果 脑膜中动脉是DAVF最多见的供血动脉(37.5%)。DAVF患者的首发症状以头痛为主(43.64%)。经血管内介入治疗的DAVF患者较经手术切除的患者预后好3.955倍;无颅内出血患者较伴有颅内出血患者的预后好4.464(1/0.224)倍。结论 对于硬脑膜动静脉瘘患者,尽早明确诊断,首选血管内治疗。

**关键词:**硬脑膜动静脉瘘;血管内介入治疗;预后因素;回顾性分析

中图分类号:R743.4

DOI:10.16636/j.cnki.jinn.2020.03.002

## An analysis of the clinical characteristics and prognosis of intracranial dural arteriovenous fistula

ZHANG Xue-Zhi, LAI Ling-Feng, CHEN Yan, WEI Min-Jun, ZHANG Qian-Wen, JIANG Zhi-Qun\*. Neurosurgery Department, The First Affiliated Hospital of Nanchang University, Nanchang City, Jiangxi Province, 330006

Corresponding author: JIANG Zhi-Qun, Email: jzq315@126.com

**Abstract: Objective** To analyze the clinical characteristics of intracranial dural arteriovenous fistula (DAVF), and to investigate its prognostic factors. **Methods** Forty-eight patients with DAVF who were admitted to the Neurosurgery Department of the First Affiliated Hospital of Nanchang University from March 2012 to September 2019 were enrolled in the study. A retrospective analysis was performed, with sex, age, number of feeding arteries, cortical venous drainage, fistula location, treatment method, and intracranial hemorrhage as subvariables. The patients were followed up through outpatient visits and telephone interviews at 6 months after discharge. Finally, univariate and multivariate logistic regression analyses were performed on the collected data. **Results** The middle meningeal artery was the most common feeding artery for DAVF (37.5%). Headache was the primary symptom initially observed in patients with DAVF (43.64%). Patients with DAVF treated by endovascular treatment had a prognosis 3.955 times better than those treated by surgical resection; patients without intracranial hemorrhage had a prognosis 4.464 (1/0.224) times better than those with intracranial hemorrhage. **Conclusions** Patients with DAVF should be given a confirmed diagnosis as early as possible, and endovascular treatment is the preferred choice.

**Key words:** Dural arteriovenous fistula; Endovascular treatment; Prognostic factor; Retrospective analysis

硬脑膜动静脉瘘(Dural arteriovenous fistula, DAVF)是一种独特的血管畸形。它是脑膜动脉与硬脑膜静脉窦、脑膜静脉或者皮质静脉之间的一种

动静脉分流<sup>[1]</sup>。在颅内动静脉畸形疾病中,DAVF约占其总数的10%~15%<sup>[2]</sup>。随着头颅磁共振(MR)、颅脑血管CT成像及全脑血管造影普及,颅

基金项目:江西省科技计划。项目编号:20161BBG70160

收稿日期:2020-03-20;修回日期:2020-06-18

作者简介:张学智(1993-),男,医学硕士,医师。研究方向:脑脊髓血管病。

通信作者:江志群(1971-),男,副主任医师,研究方向:脑脊髓血管病。Email:jzq315@126.com

内动静脉畸形相关疾病的年检出率有所升高<sup>[3]</sup>。此外, Pubmed 数据库显示: 2010 年至 2019 年关于 DAVF 的文献数较 2000 年至 2009 年的文献数多了一倍以上。然而, DAVF 治疗的疗效仍存在争议。本研究通过对近年收治的硬脑膜动静脉瘘患者治疗的疗效, 进一步探讨 DAVF 的预后因素。

1 材料与方法

1.1 临床资料

研究对象是南昌大学第一附属医院 2012 年 3 月—2019 年 9 月期间收治的 DAVF 患者。本研究通过南昌大学第一附属医院联众数字化病案浏览器共收集了 48 例 DAVF 患者。其中, 男 27 例, 女 21 例; 年龄 16 ~ 77 岁, 平均 (48.0 ± 13.0) 岁。3 例患者自行要求出院, 未进行手术切除和血管内介入治疗。9 例患者接受颅内硬脑膜动静脉瘘切除术。36 例患者先接受了血管内介入治疗。血管内介入治疗患者: 1 例患者血管内介入治疗失败后出院。2 例患者血管介入治疗失败后进行 DAVF 切除术。35 例患者成功完成血管内介入治疗, 其中 8 例患者 DAVF 部分残留, 另有 2 例患者进行了 2 次介入栓塞治疗。纳入标准为: ①数字减影血管造影 (DSA) 确诊为硬脑膜动静脉瘘; ②非住院复查患者。如表 1。

1.2 影像学特征

本研究查阅了 48 例患者的全脑血管造影资料, 对 DAVF 的供血动脉分布、瘘口及皮质引流静脉进行了初步的分析。如表 1。

表 1 DAVF 患者影像资料 (例)

供血动脉数		瘘口		是否皮层引流静脉	
单根	19	前颅窝	13	是	34
≥2 根	29	中路窝	21	否	14
		后路窝	14		

1.3 治疗疗效评价

本研究均在患者出院后 6 个月对其进行随访, 随访方式为门诊复诊及电话咨询。所有病例按预后分为: 优 (无神经功能缺损、重返工作岗位或正常退休生活)。良 (患者能恢复正常生活, 但有一些功能受损)。差 (患者不能单独正常生活或死

亡) 有效 = “优” + “良”; 无效 = 差。

1.4 统计学方法

应用 SPSS 22.0 进行统计学分析, 计数资料采用  $\chi^2$  检验, DAVF 患者预后相关的影响因素分析采用非条件 Logistic 回归。  $P < 0.15$  差异有统计学意义。

2 结果

2.1 供血动脉及首发症状

根据患者全脑造影的影像及报告, 本研究发现 48 例 DAVF 脑膜供血动脉的分布情况。48 位患者总共有 80 支动脉参与脑膜供血, 其中眼动脉 7 支, 咽升动脉无名支 4 支, 脑膜副动脉 2 支, 脑膜垂体干 10 支, 椎动脉脑膜后支 6 支, 枕动脉 12 支, 椎动脉脑膜前支 9 支, 脑膜中动脉 30 支。如图 1。

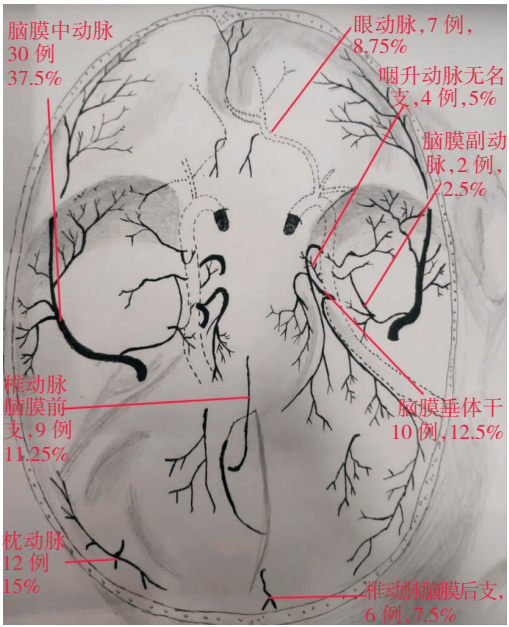


图 1 DAVF 的脑膜供血动脉分布图

本研究收集了 48 位患者所有的首发症状, 并对其占比进行统计。大部分患者以头痛为首发症状 (43.64%)。其次, 眼部疾病 (包括眼部充血、眼突、眼睑下垂、眼部包块、眼球活动障碍、视物模糊及视力下降) 占 18.18%。在本研究中, 头痛及头晕是 DAVF 的常见合并症。结果见表 2。

表 2 首发症状占比表

首发症状	头痛	眼部疾病	头晕	恶心及呕吐	颅内杂音	意识不清	肢体活动障碍	癫痫
患者数目/个	24	10	9	3	3	2	2	2
占比/%	43.64	18.18	16.36	5.45	5.45	3.64	3.64	3.64

2.2 外科治疗、血管内治疗与瘘口

本研究外科治疗与血管内治疗的临床资料(瘘口位置、病例数及颅内出血数)进行对比。(其中3例未进行治疗的 DAVF 患者未纳入统计中)如表 3。

表 3 两种治疗方案临床资料对比表 (例)

瘘口位置	手术外科治疗		血管内治疗	
	病例数	颅内出血数	病例数	颅内出血数
前颅窝	6	2	7(其中 1 例治疗失败)	1
中颅窝	2	2	9	1
后颅窝	1	1	20	7

2.3 单因素 Logistic 回归分析

变量赋值情况见表 4。笔者把每个自变量与因变量(是否有效)进行单因素 Logistic 回归分析。分

析结果的 P 值如表 5。结果提示性别、治疗方式与颅内出血等因素与 DVAF 预后相关(设置 P 值 < 0.15)。

表 4 预后相关因素及其赋值

因素	变量	赋值说明
是否有效	Y	0:无效;1:有效
性别	X1	0:女;1:男
年龄	X2	0:16-48;1:≥48
供血动脉数	X3	0:单根;1:多根
是否有皮质静脉引流	X4	0:无;1:有
瘘口所在颅窝	X5	0:前颅窝;1:中颅窝;2:后颅窝
治疗方式	X6	0:手术切除;1:血管内治疗
是否颅内出血	X7	0:无;1:有

表 5 定性自变量卡方检验

因素	无效数	有效数	$\chi^2$ 值	P 值
性别				
女	5	15	2.445	0.118
男	2	23		
年龄				
16-48 岁	4	19	0.121	0.728
≥48 岁	3	19		
供血动脉数				
单根	3	15	0.028	0.867
多根	4	23		
有无皮质静脉引流				
无	0	13	3.368	0.066
有	7	25		
瘘口位置				
前颅窝	1	6	0.020	0.990
中颅窝	2	10		
后颅窝	4	22		
治疗方式				
手术切除	3	6	2.707	0.100
血管内治疗	4	32		
是否颅内出血				
无	3	27	2.115	0.146
有	4	11		

2.4 多因素 Logistic 回归分析

在单因素 Logistic 回归分析基础上,筛选进入分析的变量进行多因素 Logistic 回归分析。结果见

表 6。多因素 Logistic 回归结果提示,性别 ( $\hat{OR} = 5.627$ ),治疗方式 ( $\hat{OR} = 6.955$ )以及颅内出血 ( $\hat{OR} = 0.224$ )是影响 DAVF 患者预后的相关因素。

表 6 DAVF 预后危险因素多因素 Logistic 回归分析

变量	$\beta$	SE	Wald $\chi^2$	P	$\hat{OR}$	95% CI
Enter 法性别(1)	1.728	1.149	2.259	0.133	5.627	0.591-53.545
治疗方式(1)	1.940	1.104	3.088	0.079	6.955	0.800-60.508
是否颅内出血(1)	-1.496	1.027	2.120	0.145	0.224	0.30-1.678

注:(1)表示:赋值=1 与赋值=0 相比。

男性 DAVF 患者较女性 DAVF 患者预后好 5.627 倍;经血管内介入治疗的 DAVF 患者较经手术切除的患者预后好 3.955 倍;无颅内出血患者较伴有颅内出血患者的预后好 4.464 (1/0.224) 倍。

### 3 讨论

#### 3.1 治疗方案

DAVF 的病因有创伤、外科手术、静脉窦血栓、先天因素及其他<sup>[4]</sup>。一般认为,DAVF 是后天获得<sup>[5,6]</sup>。脑血管造影在 DAVF 的诊断方面和手术方案设计方面上具有非常重要的作用<sup>[7,8]</sup>。目前,DAVF 的治疗策略主要包括血管内介入治疗、显微外科和立体定向放射外科<sup>[9-11]</sup>。显微外科创伤相对较大<sup>[12]</sup>。虽然立体定向放射外科手术达到 DAVF 治愈率 58% ~ 73%,潜伏期 1 ~ 3 年,立体定向放射外科手术通常不被看好<sup>[13,14]</sup>。对于 DAVF 患者来说,手术切除与血管内介入治疗的两种疗效都比较满意。

然而,液体栓塞剂(Onyx 和 NBCA)的出现,血管内栓塞成为首选治疗方式。一方面是因为:液体栓塞剂早在 20 年前就用于血管内介入治疗,随着液体栓塞剂、微导管及导丝工艺的发展,液体栓塞剂得到广泛应用。另一方面是:液体栓塞剂聚合的速率可以根据需要进行调节,这样术者就可以避免栓塞剂在供血动脉中过早发生聚合反应或者在引流静脉处发生过晚地发生聚合反应<sup>[15]</sup>。此外,血管内介入治疗具有创伤小及住院时间短这两种优势。

#### 3.2 影响预后的因素

本研究发现性别为影响预后的危险因素,男性患者的预后较女性患者好。其原因尚待进一步研究。然而,Shah 的研究认为女性的 DAVF 发生率(61% ~ 66%)较男性高<sup>[16]</sup>;但本研究的女性 DAVF 的发病率(43.75%)小于男性。本研究的相对小样本可能会造成结果偏倚。此外,性别的  $P$  值为 0.133。因此,统计学上可能并不认为性别是预后的危险因素。颅内出血的预后与 Malik 的研究<sup>[17]</sup>相符。颅内出血常伴随永久性神经功能障碍,甚至导致患者瘫痪。本研究中,颅内出血导致 2 例患者肢体活动障碍,甚至导致 2 例患者意识不清。

本研究中,接受血管内治疗 DAVF 患者的预后较接受手术外科治疗的好。一方面是:外科治疗的病例数少,结果可能存在偏倚。然而,这种情况也可能跟术者倾向有关。随着血管内介入的材料、设备及技术等发展,术者可能更倾向于血管内治

疗<sup>[18]</sup>。另一方面是:本研究中,外科治疗面对的 DAVF 患者可能常伴有颅内出血;同时,本研究中的 2 例患者是在血管内治疗失败后接受手术外科治疗。这些情况可能拉低外科治疗的价值。

本研究中皮质静脉引流未成为独立因素。这一点与 Malik、Lasjaunias 及 Award 等的研究<sup>[4,17,19]</sup>不同。皮质静脉引流是目前公认的 DAVF 预后因素。本研究的研究对象良性 DAVF 居多。由于头颅 CTA 普及<sup>[20]</sup>,更多 DAVF 患者在还没演变成侵袭性 DAVF 前被诊断出来。本研究发现供血动脉数不是 DAVF 预后的影响因素。硬脑膜动静脉瘘的供血动脉往往来自比邻的脑膜支。Fincher 病例报道证实:只解决供血动脉问题而不解决瘘口问题,DAVF 会复发<sup>[21]</sup>。处理硬脑膜动静脉瘘的关键是闭塞瘘口。该瘘口的免疫组化表明,瘘口存在内皮和平滑肌细胞而没有内弹力膜,则证实其静脉来源<sup>[22]</sup>。因此,供血动脉数不是 DAVF 手术或者栓塞的主要治疗难度。手术的难度在于瘘口的寻找,而栓塞的难度在于导管能否到达瘘口位置。

本研究为回顾性研究,无法避免回顾性研究本身存在的误差。其次,本研究仅纳入 48 例研究对象,病例数较少,统计时可能出现偏倚。因此,本研究仍需扩大样本再次进行评估。

### 4 结论

随着神经介入的发展,血管内介入治疗逐渐成为 DAVF 首先治疗方案。由于血管内介入治疗能够使 DAVF 患者获得比较满意的疗效,因此早期诊断、早期治疗对 DAVF 患者比较重要。

#### 参 考 文 献

- [1] Gandhi D, Chen J, Pearl M, et al. Intracranial dural arteriovenous fistulas: classification, imaging findings, and treatment [J]. *AJNR*, 2012, 33 (6): 1007-1013.
- [2] Newton TH, Cronqvist S. Involvement of dural arteries in intracranial arteriovenous malformations [J]. *Radiology*, 1969, 93 (5): 1071-1078.
- [3] Al-Shahi R, Bhattacharya JJ, Currie DG, et al. Prospective, population-based detection of intracranial vascular malformations in adults: the Scottish Intracranial Vascular Malformation Study (SIVMS) [J]. *Stroke*, 2003, 34 (5): 1163-1169.
- [4] Awad IA, Little JR, Akrawi WP, et al. Intracranial dural arteriovenous malformations: factors predisposing to an aggressive neurological course [J]. *J Neurosurg*, 1990, 72 (6): 839-850.

- [ 5 ] Della Pepa GM, Parente P, D'Argento F, et al. Angio-architectural features of high-grade intracranial dural arteriovenous fistulas: Correlation with aggressive clinical presentation and hemorrhagic risk [ J ]. Neurosurgery, 2017, 81 ( 2 ) : 315-330.
- [ 6 ] Padilha IG, Pacheco FT, Araujo AIR, et al. Tips and tricks in the diagnosis of intracranial dural arteriovenous fistulas: A pictorial review [ J ]. J Neuroradiol, 2019, DOI:10.1016/J.Neurad.2019.06.004.
- [ 7 ] Botsford A, Shankar JJS. Digital subtraction angiography-dy-navision in pretreatment planning for embolization of dural arterio venous fistulas [ J ]. J Neuroimaging, 2018, 28 ( 1 ) : 112-117.
- [ 8 ] Guo H, Yin QK, Liu P, et al. Focus on the target: Angio-graphic features of the fistulous point and prognosis of trans-venous embolization of cavernous sinus dural arteriovenous fistula [ J ]. Interv Neuroradiol, 2018, 24 ( 2 ) : 197-205.
- [ 9 ] Natarajan SK, Ghodke B, Kim LJ, et al, Multimodality treat-ment of intracranial dural arteriovenous fistulas in the Onyx era: a single center experience [ J ]. World Neurosurg, 2010, 73 ( 4 ) : 365-379.
- [ 10 ] Xu K, Ji TF, Li C, et al. Current status of endovascular treatment for dural arteriovenous fistula of the transverse-sig-moid sinus: A literature review [ J ]. Int J Med Sci, 2018, 15 ( 14 ) : 1600-1610.
- [ 11 ] Baek HG, Park SH, Park KS, et al. Stereotactic radiosur-gery for dural arteriovenous fistulas involving the transverse-sigmoid sinus: A single center experience and review of the literatures [ J ]. Korean Neurosurg Soc, 2019, 2 ( 4 ) : 458-466.
- [ 12 ] Giannopoulos S, Texakalidis P, Mohammad Alkhataybeh RA, et al. Treatment of ethmoidal dural arteriovenous fistulas: A meta-analysis comparing endovascular versus surgical treatment [ J ]. World Neurosurg, 2019, 128 : 93-599. e1.
- [ 13 ] Park SH, Park KS, Kang DH, et al. Stereotactic radiosur-gery for intracranial dural arteriovenous fistulas: its clinical and angiographic perspectives [ J ]. Acta Neurochir ( Wien ), 2017, 159 ( 6 ) : 1093-1103.
- [ 14 ] Tonetti DA, Gross BA, Jankowitz BT, et al. Stereotactic ra-diosurgery for dural arteriovenous fistulas without cortical ve-nous reflux [ J ]. World Neurosurg, 2017, 107 : 371-375.
- [ 15 ] Debrun GM, Aletich V, Ausman JI, et al. Embolization of the nidus of brain arteriovenous malformations with n-butyl cy-anoacrylate [ J ]. Neurosurgery, 1997, 40 : 112-120.
- [ 16 ] Shah SB, Lalwani AK, Dowd CF. Transverse-sigmoid sinus dural arteriovenous malformations [ J ]. Contemporary Neuro-surgery, 1999, 21 ( 15 ) : 1-6.
- [ 17 ] Malik GM, Pearce JE, Ausman JI, et al. Dural Arteriove-nous Malformations and Intracranial Hemorrhage [ J ]. Neuro-surgery, 1984, 15 ( 3 ) : 332-339.
- [ 18 ] Cannizzaro D, Brinjikji W, Rammos S, et al. Changing Clin-ical and Therapeutic Trends in Tentorial Dural Arteriovenous Fistulas: A Systematic Review [ J ]. AJNR, 2015, 36 ( 10 ) : 1905-1911.
- [ 19 ] Lasjaunias P, Chiu M, ter Brugge K, et al. Neurological manifestations of intracranial dural arteriovenous malformations [ J ]. Neurosurg, 1986, 64 ( 5 ) : 724-730.
- [ 20 ] 孙立军, 范一木, 只达石. 硬脑膜动静脉瘘的诊治进展 [ J ]. 国际神经病学神经外科学杂志, 2006, 33 ( 1 ) : 34-37.
- [ 21 ] Fincher EF. Arteriovenous fistula between the middle menin-geal artery and the greater petrosal sinus; case report [ J ]. Ann Surg, 133 ( 6 ) : 886-888.
- [ 22 ] Elhammady MS, Ambekar S, Heros RC. Epidemiology, clin-ical presentation, diagnostic evaluation, and prognosis of cere-bral dural arteriovenous fistulas [ J ]. Handb Clin Neurol, 2017, 143 : 99-105.