

# TRATAMENTO ENDOVASCULAR DE FÍSTULA ARTERIOVENOSA VERTEBRAL ESPONTÂNEA EM CRIANÇA

## Relato de caso

*Paulo Eloy Passos Filho<sup>1</sup>, Paulo Ricardo Mattana<sup>2</sup>, João Luís Pontalti<sup>3</sup>, Fabrício Molon da Silva<sup>4</sup>*

**RESUMO** - Fístulas espontâneas da artéria vertebral são raras malformações arteriovenosas entre a artéria vertebral e um vaso circunvizinho. Relatamos um caso de fístula arteriovenosa, não traumática, em uma criança de 9 anos de idade, submetida a tratamento por via endovascular. Sob anestesia geral e controle fluoroscópico, empregou-se a técnica endovascular para posicionar um balão destacável de látex, dessa forma ocluindo totalmente o trajeto fistuloso. Resolução clínica e angiográfica foi obtida, e não houve complicações relacionadas com o procedimento de embolização. O resultado observado comprova que a embolização especialmente oclusão com balões descartáveis, tornou-se o tratamento padrão para esta enfermidade.

**PALAVRAS-CHAVE:** embolização endovascular com balão, fístula arteriovenosa, artéria vertebral, oclusão endoarterial.

### **Endovascular treatment of spontaneous vertebral arteriovenous fistula in children: case report**

**ABSTRACT** - Spontaneous cervical artery fistulas are rare arteriovenous malformations between the artery and veins of the neighborhood. We report a case of non traumatic vertebral arteriovenous fistula in a girl, aged 9 years, treated by endovascular approach. Under general anesthesia and with fluoroscopic guidance, using a endovascular technique, latex detachable balloons were used to successfully occlude the fistula. Complete clinical and angiographic recovery was achieved and no complications related to the embolization procedure occurred. The result obtained in this case corroborates that endovascular techniques, especially balloon occlusion embolization, has become the standard treatment for this vascular disorder.

**KEY WORDS:** endovascular, balloon embolization, arteriovenous fistula, vertebral artery, endoarterial occlusion.

Fístulas arteriovenosas envolvendo a artéria vertebral são lesões raras<sup>1,2</sup>, definidas pela presença de uma comunicação anormal entre a artéria vertebral extracraniana ou um de seus ramos e um vaso circunvizinho<sup>3</sup>. Quanto à etiologia, as fístulas arteriovenosas vertebrais dividem-se em traumáticas e espontâneas<sup>1-3</sup>. Fístulas espontâneas são congênitas, mesmo não tendo comprovação de sua existência ao nascimento<sup>2</sup>. Associam-se, muitas vezes, a displasia fibromuscular<sup>2</sup>, neurofibromatose<sup>4,5</sup>, ou síndrome de Ehlers-Danlos, e requerem um mínimo evento para se manifestar, como um pequeno trauma ou mesmo um espirro<sup>6</sup>. Fístulas traumáticas são associadas a lesões traumáticas do pescoço, usualmente por fa-

ca ou projétil<sup>7,8</sup>. Causas iatrogênicas incluem inadvertida punção vertebral, após punção da veia jugular para acesso venoso<sup>9</sup>, ou após punção direta da artéria carótida para realização de angiografia. Outras causas incomuns incluem cirurgia de pescoço, trauma moderado com fratura de coluna cervical<sup>10,11</sup>.

A porção da artéria vertebral envolvida é variável, estando de acordo com a etiologia. A parte proximal da segunda porção da artéria é usualmente envolvida nas fístulas traumáticas, enquanto que a fístula espontânea ocorre, comumente, na terceira porção da artéria<sup>1,7,12</sup>. A drenagem venosa é variável, mas usualmente envolve o sistema jugular, embora possa ocorrer em outros sistemas venosos<sup>3</sup>. O

Centro de Neurorradiologia Intervencionista do Hospital Del Mese, Caxias do Sul RS, Brasil: <sup>1</sup>Médico Neurorradiologista Intervencionista; <sup>2</sup>Médico Neurocirurgião, Professor da Disciplina de Neurologia da Universidade de Caxias do Sul; <sup>3</sup>Médico Neurocirurgião; <sup>4</sup>Acadêmico do Curso de Graduação em Medicina da Universidade de Caxias do Sul.

Recebido 13 Setembro 2001, recebido na forma final 9 Janeiro 2002. Aceito 22 Janeiro 2002.

João Luís Pontalti - Rua Graciema Formolo 4226/201 - 95054-150 Caxias do Sul RS - Brasil.

plexo venoso epidural é envolvido em um quarto dos casos, com possibilidade de desenvolvimento de hipertensão no cone medular<sup>3</sup>. Muitos casos de fistula vertebral têm sido relatados em adultos, mas poucos na infância<sup>1,3</sup>. As fistulas vertebrais são comumente uma condição benigna, sendo descobertas na auscultação de rotina<sup>1</sup>. Quando apresentam sintomas, devem-se ao aumento do fluxo, cronicidade da lesão e características da drenagem venosa. Um fluxo turbulento, ruídos na região cervical e vertigens ocorrem em 60% dos casos<sup>1</sup>. Sintomas neurológicos são raros, comumente relacionam-se a mecanismos de compressão, roubo arterial ou hipertensão venosa<sup>1,13</sup>. Sintomas e sinais de compressão incluem radiculopatia cervical<sup>1</sup> ou síndrome de Brown-Séquard<sup>14</sup>, ocasionada por plexos venosos dilatados<sup>12</sup>. Fistulas assintomáticas podem gradualmente tornar-se sintomáticas devido ao roubo sanguíneo intracraniano, dessa forma resultando insuficiência vertebrobasilar<sup>3</sup>. Hipertensão venosa pode afetar a drenagem sanguínea da medula espinhal, gerando paraparesia e tetraparesia<sup>15</sup>. Insuficiência cardíaca é uma apresentação rara na criança<sup>3</sup>.

A faixa etária pediátrica constitui um grupo especial de pacientes, em virtude do maior risco de complicações, sendo a abordagem endovascular com oclusão da fistula, por balão destacável, o método de escolha no tratamento desta enfermidade. Relatamos um caso de fistula vertebro jugular (FVJ) espontânea, em criança, tratada com balão destacável, obtendo-se oclusão total da fistula, sem danos ao sistema vertebrobasilar.

## CASO

Menina de 9 anos, conduzida a avaliação de um neurologista devido a zumbido no ouvido direito, de característica pulsátil e que aumentava em decúbito lateral direito. Início há aproximadamente três anos, com piora progressiva nos últimos meses. Ao exame físico apresentava-se em bom estado geral, afebril e eupneica. A ausculta cervical posterior evidenciava sopro de ++ e a palpação, presença de frêmito. Ao exame neurológico apresentava Glasgow 15; ausência de déficit de nervos cranianos. Ultra-som Doppler colorido mostrou aumento de calibre da artéria vertebral esquerda, identificando-se estruturas vasculares tortuosas e ectópicas com fluxo extremamente turbulento.

A suspeita diagnóstica de FVJ foi confirmada por angiografia digital de vasos cervicais, a qual demonstrou a presença de um trajeto fistuloso entre a artéria vertebral esquerda e a veia jugular esquerda, ao nível da segunda vértebra cervical (Figs 1 e 2).

Realizada abordagem endovascular da fistula através de cateterização seletiva da artéria cervical esquerda via punção femoral, com embolização por balão de látex destacável (Nycomed Ingenor<sup>®</sup>) preenchido por mistura de contraste e solução fisiológica. Foram utilizados dois balões de látex, permitindo oclusão total da fistula sem complicações cirúrgicas.

A evolução favorável da paciente permitiu sua alta hospitalar em três dias após a intervenção neurovascular. A angiografia digital de vasos cervicais, realizada após seis meses, demonstrou balão de embolização vazio e fechamento total da fistula vertebral. (Fig 3)

## DISCUSSÃO

No caso descrito, a presença da FVJ, com importante refluxo cortical evidenciado pela angiografia



Fig 1. Angiografia digital demonstrando fistula da artéria vertebral esquerda, possuindo fluxo predominante para o trajeto fistuloso.



Fig 2. A artéria vertebral direita nutre a circulação cerebral posterior e a fistula através da artéria vertebral contralateral distal.



Fig 3. Controle angiográfico após seis meses de embolização. Balão vazio e oclusão total da fístula vertebro jugular esquerda. Anatomia preservada.

digital, justificou o tratamento empregado. O esvaziamento de balões destacáveis acontece progressivamente entre três a quatro semanas após a embolização, permitindo neste intervalo a trombose e a resolução adequada da fístula<sup>16</sup>.

Sabe-se que as alterações de volume de um balão de látex independem de gradientes osmóticos entre o conteúdo do balão e o plasma, uma vez que o látex não apresenta propriedades de membrana semipermeável<sup>17</sup>. Falhas no mecanismo valvular dos balões e alterações na permeabilidade do látex, em virtude do vencimento do prazo de validade ou esterilizações sucessivas do material, são causas prováveis de esvaziamento precoce<sup>17</sup>. O esvaziamento precoce leva a recidiva da fístula, porém o esvaziamento tardio com reperfusão da fístula é raramente relatado. A oclusão endovascular é satisfa-

tória, com bons resultados anatômicos e funcionais<sup>18,19</sup>, com nenhuma mortalidade descrita na literatura<sup>2</sup>.

Complicações da terapia empregada são raras quando utilizada adequadamente a técnica endovascular. Potenciais complicações incluem reações ao contraste, embolizações, dissecação e espasmo vascular<sup>1,18-20</sup>. A migração do balão pode ocorrer, porém o posicionamento adequado e a hipotensão pós-procedimento diminuem o risco<sup>2</sup>. Além disso, após a oclusão da fístula pode ocorrer um falso aneurisma na porção proximal do trajeto fistuloso<sup>1</sup>.

## REFERÊNCIAS

1. Beaujeux RL, Reizine DC, Casasco A, et al. Endovascular treatment of vertebral arteriovenous fistula. *Radiology* 1992;183:361-367.
2. Sadasivan B, Mehta B, Dujovny MD, Malik G, Ausman JI. Balloon embolization of nontraumatic vertebral arteriovenous fistulae in children. *Surg Neurol* 1989;32:126-130.
3. Aymard A, Chapot R, Houdart E, et al. Endovascular therapy for vertebral artery arteriovenous fistulae. In Connors JJ, Wojak JC. *Interventional neuroradiology*. Philadelphia: Saunders, 1999:180-185.
4. Parkinson D, Hay R. Neurofibromatosis. *Surg Neurol* 1986; 25:109-113.
5. Negoro M, Nakaya T, Terashima K, Sugita K. Extracranial vertebral artery aneurysm with neurofibromatosis: endovascular treatment by detachable balloon. *Neuroradiology* 1990;31:533-536.
6. Debrun G, Legre I, Kasbarin M, Tapias PL, Caron JP. Endovascular occlusion of vertebral fistulae by detachable balloons with conservation of vertebral blood flow. *Radiology* 1979;130:141-147.
7. Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB, Norman D. Normal perfusion pressure breakthrough occurring during treatment of carotid and vertebral fistulas. *Am J Neuroradiol* 1987;8:751-756.
8. Roper PR, Guinto FC, Wolma FJ. Posttraumatic vertebral artery aneurysm and arteriovenous fistula: a case report. *Surgery* 1984;96:556-559.
9. Verrieres D, Bernard C, Dacheux J, Reizine D, Echter E. Fistules arterioveineuses cervicales après cathétérisme jugulaire interne. *Ann Fr Anesth Reanim* 1986;5:162-164.
10. Hayes P, Gerlock AJ, Cobb CA. Cervical spine trauma: a cause of vertebral artery injury. *J Trauma* 1980;20:904-905.
11. Avellanosa AM, Glasauer FE, Oh YS. Traumatic vertebral arteriovenous fistula associated with cervical spine fracture. *J Trauma* 1977;17:885-888.
12. Nagashima C, Iwasaki T, Kawanuma S, Sakaguchi A, Suzuki K. Traumatic arteriovenous fistula of vertebral artery with spinal cord symptoms: case Report. *J Neurosurg* 1977;46:681-687.
13. Merland JJ, Reizine D, Riche MC, et al. Endovascular treatment of vertebral arteriovenous fistulas in twenty-two patients. *Ann Vasc Surg* 1986;1:73-78.
14. Freitag HJ, Grzycka U, Zeumer H. The use of the 'cross over technique' in the management of a traumatic vertebro-vertebral fistula. *Neuroradiology* 1989;31:174-176.
15. Woimant F, Merland JJ, Riche MC, et al. Syndrome bulbo-médullaire en rapport avec une fistule artério-veineuse méningée du sinus latéral à drainage veineux médullaire. *Rev Neurol* 1982; 138:559-566.
16. Debrun G, Lacour P, Caron JP, Hurth M, Comoy J, Keravel Y. Detachable balloon and calibrated-leak balloon techniques in the treatment of cerebral vascular lesions. *J Neurosurg* 1978;49:635-649.
17. Hawkins TD, Szaz KF. The permeability of detachable latex rubber balloons. *Invest Radiol* 1987; 22:969-972.
18. Petit A, Coudert B, Louis P, Bouhey JB. Fistules artério-veineuses paravertebrales congénitales de l' enfant et de l' adolescent. *Arch Mal Coeur Vaiss* 1986;79:659-666.
19. Beltramello A, Maschio A, Piovani E, et al. Spontaneous arterio-venous fistulae of the vertebral artery: diagnosis and therapeutic considerations. *Eur J Radiol* 1988;8:148-152.
20. Teng MM, Chang T, Huang CI, et al. Percutaneous reposition of dislodged coils in the treatment of a vertebral arteriovenous fistula with CT follow-up. *Neuroradiology* 1991;33:195-199.