# NEURORRADIOLOGIA VASCULAR

ACTA MÉDICA PORTUGUESA 2001; 14;

# FÍSTULAS DURAIS DO ANDAR ANTERIOR

J. XAVIER, R. CRUZ, A. STOCKER, C. VASCONCELOS, J. REIS, J. ALMEIDA-PINTO Serviço de Neurorradiologia. Hospital Geral de Santo António. Porto

#### RESUMO

As fístulas durais do andar anterior são raras. Os autores apresentam cinco casos de fístulas durais do andar anterior, com ênfase na apresentação clínica, aspectos imagiológicos, tratamento e resultados dos doentes apresentados.

Em quatro casos , a hemorragia foi a forma de apresentação; no outro caso o doente foi investigado por cefaleias. Em dois casos as aferências arteriais eram bilaterais, em dois casos unilaterais e num caso predominantemente de um lado. A contribuição da carótida externa quando presente era mínima. A drenagem venosa envolvia o seio sagital superior, as veias silvianas e o seio cavernoso. Em três doentes associavam-se aneurismas venosos no andar anterior; destes, dois apresentaram-se com hemorragia, mas o terceiro mantém-se assintomático há sete anos. Três doentes foram tratados cirurgicamente, com exclusão do ponto de fístula, sem complicações e com controlo angiográfico normal.

Os nossos casos, em concordância com a literatura, confirmam o carácter agressivo das fístulas durais do andar anterior. O tratamento cirúrgico é eficaz, devendo ser o mais precoce possível. O tratamento endovascular pode ser tentado, mas é tecnicamente difícil e com custos elevados.

Palavras-chave: Andar anterior, fístulas durais, hemorragia cerebral, angiografia

#### SUMMARY

#### Dural Arterio-venous shunts of the anterior cranial fossa

Dural arterio-venous shunts (DAVS) of the anterior cranial fossa are quite rare. There are only a few cases reported in the literature. The authors present 5 cases of dural arterio-venous shunts (DAVS) of the anterior cranial fossa, allowing more data for later reviews of this rare and aggressive localisation of DAVS. The clinical set, imaging findings (with emphasis in diagnostic angiography), treatment and outcome in these 5 patients are described.

Haemorrhage was the presenting form in 4 patients; the other case presented was investigated for headache. There were bilateral symmetric feeders in two patients, unilateral feeders in another two and unilateral predominant feeders in one; contribution of the external carotid artery, when present, was always minimal. Venous drainage included one or combinations of these: superior sagittal sinus, sylvian veins and cavernous sinus. Three patients had venous aneurysms in anterior cranial fossa; of these, two presented with haemorrhage, but the third one of them has been asymptomatic for 7 years.

Three patients were treated by surgical exclusion of the shunt and became clinical and angiographicaly normal.

According to the literature, our cases confirm the highly aggressive behaviour of these DAVS. Surgical treatment is an efficacious method of therapy and should be done as soon as possible. Embolization can be attempted but is technically difficult and eventually too expensive.

Key words: anterior fossa, dural arteriovenous fistula, cerebral haemorrhage, angiography

# INTRODUÇÃO

As fistulas durais (FD) do andar anterior são bastante raras. Existem apenas alguns casos na literatura<sup>1,2</sup>. Ao efectuar uma revisão da literatura, Nakagawa et al<sup>3</sup>, encontraram apenas 58 casos de FD e as maiores séries que encontramos contêm apenas seis a nove casos<sup>4-7</sup>.

Relata-se uma série de cinco casos representando uma percentagem invulgarmente elevada do número total de FD diagnosticadas na nossa instituição num período de cinco anos - 25% de 21 casos em comparação com os 4% de 205 casos na série de Cognard<sup>8</sup>.

As FD representam um grupo único de fistulas durais devido à sua potencialidade hemorrágica, provocando principalmente hemorragia intracerebral<sup>4,9-13</sup>, mas também hemorragia subaracnoideia<sup>5,14</sup>, hematoma subdural<sup>1</sup> ou uma associação de vários tipos de hemorragia1<sup>1</sup>. Os fenómenos hemorrágicos são a causa dos sintomas de apresentação em 91% dos casos<sup>3</sup>.

Outras apresentações podem ser disfunção transitória do lobo frontal<sup>3</sup>, amnésia global passageira<sup>2</sup>, convulsões<sup>4,7</sup>, tinitus<sup>7</sup>, cefaleia retro-orbital<sup>7</sup>, hemorragia nasal<sup>1</sup>, proptose, quemose, pressão intraocular elevada e perda de visão<sup>6</sup>. As FD também podem ser achados incidentais 16,17,19

# MÉTODOS (descrição dos casos clínicos)

#### Caso 1

Doente do sexo feminino com 42 anos e com antecedentes de hipertensão arterial durante anos, apresentou-se com cefaleias e hemiparésia esquerda súbita. A TAC demonstrou um grande hematoma parietal direito intraparenquimatoso estendendo-se para o espaço ventricular e hidrocefalia ligeira. (Figura 1 a).

A angiografia da carótida comum direita evidenciou fístula de baixo débito com preenchimento precoce da



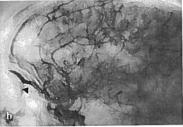


Fig. 1 a,b. - Doente 1. A TAC (a) demonstra um hematoma parietal intraparenquimatoso direito com ruptura para o sistema ventricular. A angiografia da carótida comum direita, incidência lateral, (b) demonstra o preenchimento precoce de veia oftálmica proeminente (cabeça de seta) durante a fase arterial.

veia oftálmica, seio cavernoso e seio sagital superior, este apresentando uma pequena dilatação na região parietal (Figura 1b). Não foram identificadas as aferências arteriais específicas.

Verificou-se também aumento do tempo de circulação cerebral.

Como não se encontrou qualquer malformação arteriovenosa na região parietal atribuiu-se a hemorragia à hipertensão arterial e a doente teve alta.

Perdeu-se o follow-up.

#### Caso 2

Uma doente do sexo feminino com 50 anos de idade apresentou-se com cefaleia súbita. A TAC revelou um enorme hematoma fronto-basal estendendo-se para a fissura inter-hemisférica e sistema ventricular (com hidrocefalia) (Figura 2a).

Suspeitou-se de um aneurisma da artéria comunicante anterior, mas a angiografia revelou uma fistula arteriovenosa do andar anterior alimentado por ramos das artérias oftálmica e esfenopalatina de ambos os lados e com drenagem para a veia fronto-basal esquerda, que tinha um aneurisma, com preenchimento posterior das veias silviana, Labbé e parietal esquerdas. (Figuras 2b,c).





Fig. 2 a,b,c. - Doente 2. A TAC (a) demonstra um hematoma intraparenquimatoso fronto-basal esquerdo com ruptura para o sistema ventricular. A angiografia da carótida interna direita, incidência lateral, (b) demonstra uma fístula arterio-venosa no andar anterior (seta aberta); note o aneurisma venoso (cabeça de seta) e o preenchimento precoce da veia fronto-basal (seta).

Após uma tentativa sem sucesso de embolizar a fístula através dos ramos esfenopalatinos a doente foi operada e a fístula excluída. O seguimento angiográfico revelou ausência da fistula.

### Caso 3

Uma doente do sexo feminino com 49 anos apresentouse com hemiparésia direita súbita. A TAC e a RMN revelaram um hematoma parietal esquerdo (Figura 3a).

A angiografia revelou fistula arterio-venosa entre a artéria etmoidal anterior e uma veia cortical frontal com preenchimento precoce do seio sagital superior (Figura 3b). Não havia contribuição visível da artéria carótida externa ipsilateral ou das artérias carótidas contralaterais.

A doente foi submetida a intervenção cirúrgica para exclusão da fístula.

O controlo angiográfico foi normal.





Fig. 3 a,b. Doente 3. IRM coronal em T2 (a) demonstra um hematoma parietal paramediano esquerdo (seta aberta) e a angiografia da carótida interna esquerda (b), incidência lateral, demonstra preenchimento precoce do seio sagital superior (cabeças de seta) por fistula arteriovenosa alimentada pela artéria etmoidal anterior (seta aberta) (note o vasoespasmo na artéria cerebral anterior).

## Caso 4

Uma doente do sexo feminino com 57 anos de idade apresentou-se com súbita hemiparésia esquerda. A TAC demonstrou um hematoma fronto-basal direito de grandes dimensões com ruptura para o corno frontal. (Figura 4a).

A angiografia revelou fístula arterio-venosa do andar anterior, próximo da linha média, alimentada pelas artérias etmoidal anterior e esfenopalatina esquerdas com uma ligeira contribuição da carótida externa direita (Figuras

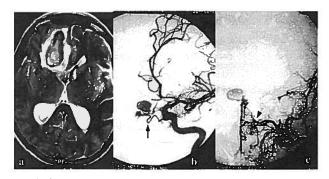


Fig. 4 a,b. Doente 4. Hematoma intraparenquimatoso fronto-basal direito rodeado por edema em IRM axial em T2 (a). A angiografia da carótida interna esquerda, incidência obliqua (b), e da carótida externa esquerda, incidência frontal (c), demonstra o preenchimento precoce de um aneurisma venoso pelos ramos das artérias esfenopalatina (cabeça de seta) e oftálmica (seta).

4b,c). A drenagem venosa efectuava-se através de uma veia fronto-basal (que apresentava grande aneurisma), continuando-se para o sistema silviano, e daí para a veia de Labbé e ambos os seios laterais.

A doente foi submetida a intervenção cirúrgica e o controle angiográfico foi normal.

#### Caso 5

Um doente do sexo masculino com 52 anos de idade foi investigado com TAC, devido a cefaleias, encontrando-se uma dilatação aneurismática no andar anterior. A angiografia revelou uma fistula arterio-venosa do andar anterior alimentada pelas artérias etmoidais anteriores e ramos das artérias esfenopalatinas de ambos os lados, com drenagem para uma veia dilatada e tortuosa, que se dirigia para o seio sagital superior e para as veias silvianas (Figura 5).

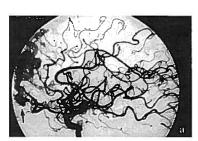




Fig. 5 a Doente 5. Angiografia da carótida interna esquerda, incidência lateral (a), e da carótida externa esquerda, incidência frontal (b), demonstra a fistula arterio-venosa do andar anterior (seta) com drenagem para veias dilatadas de grandes dimensões (seta aberta).

O diagnóstico foi feito há sete anos. Não foi efectuada nenhuma terapêutica e o doente está assintomático.

#### RESULTADOS

O Quadro I sintetiza os resultados destes cinco casos.

## DISCUSSÃO

Ainda não é conhecida a etiologia das FD mas foram associados aos seguintes factores: trauma craniano, tromboflebite cerebral, cirurgia neurológica e otites ou sinusites<sup>8,25</sup>. Herman et al, conseguiram produzir FD experimentais no rato através de anastomoses entre a artéria carótida comum direita e a veia jugular externa, provocando fluxo retrógrado através do seio transverso e promovendo a trombose do seio sagital<sup>22</sup>. Nos nossos casos, nenhum daqueles factores foram verificados.

Nakagawa et al, ao analisarem 58 casos de FD na literatura, verificaram que a idade média de apresentação

Quadro I

Sexo	Idade	CT/MRI	Aferências arteriais	Drenagem venosa	Terapeutica	Actual estado
F	42	Hematoma parietal direito	Ramos da artéria carótida comum direita	Veia oftálmica direita	-	-
F	50	Hematoma fronto-basal esquerdo	Artérias oftálmica e esfenopalatina (bilateralmente)	Veia fronto-basal esquerda Aneurisma venoso	Cirurgia	Normal
F	43	Hematoma parietal esquerdo	Artéria etmoidal anterior esquerda	Veia fronto-basal esquerda	Cirurgia	Normal
F	57	Hematoma fronto-basal direito	(principalmente)Artérias etmoidal anterior e esfenopalatina esquerdas	Veia fronto-basal direita Aneurisma venoso	Cirurgia	Normal
M	54	Sem hemorragia	Artérias etmoidal anterior e esfenopalatina (bilateralmente)	Veia fronto-basal esquerda Aneurisma venoso	-	Assintomática

era de 55,8 anos com um predomínio do sexo masculino (85,0%). Na nossa série a idade média de apresentação é semelhante (52 anos), mas com um predomínio do sexo feminino (80%). Consideramos todas estas séries bastante pequenas. Poderá vir a ser demonstrado, à medida que o número de casos descrito for aumentando, que o sexo predominante neste tipo de FD não é diferente de todos os outros casos de FD.

Também não conseguimos explicar a maior frequência deste tipo de FD no número total de FD diagnosticados no nosso serviço. Calculamos que poderá representar o subdiagnóstico das FD mais benignas.

Todos os nossos casos foram diagnosticados por angiografia. No entanto deve ser salientado que sempre que a TAC ou IRM revelem dilatações aneurismáticas no andar anterior, o diagnóstico deve ser suspeitado e o doente referenciado para angiografia de confirmação, tornando o diagnóstico provavelmente mais frequente.

Este tipo de fístula foi descrito como tendo um nidus na região da lâmina cribiforme<sup>14,16</sup> alimentado principalmente por uma ou ambas as artérias etmoidais anteriores, usualmente em combinação com ramos menos proeminentes das artérias etmoidais posteriores e/ou da artéria carótida externa1, <sup>2,4-6,11,14-18,26</sup>.

As artérias etmoidais anterior e posterior surgem da artéria nasociliar na sua passagem próxima dos seus foramina respectivos. Ocasionalmente está presente uma artéria etmoidal comum ou uma origem comum das artérias etmoidais. A artéria etmoidal posterior irriga as meninges ao longo do planum esphenoidale e da porção posterior da lâmina cribiforme. A artéria etmoidal anterior irriga a lâmina cribiforme e meninges próximas continuando-se anteriormente. Na crista galli, uma das suas ramificações (artéria anterior da foice) vira para cima para irrigar as

meninges da foice anterior e a convexidade craniana adjacente. A outra ramificação vira para baixo através da fenda nasal para entrar na cavidade nasal anterior para irrigar o septo nasal superior<sup>8,23</sup>.

Deve-se salientar que existem anostomoses entre os ramos septais da artéria esfenopalatina e as artérias etmoidais<sup>11</sup>. Portanto, a participação da artéria carótida externa pode resultar apenas da abertura destas anastomoses.

A nossa série demonstrou aferências unilaterais em dois casos, aferências unilaterais predominantes em um e aferências bilaterais simétricas em dois casos. A contribuição da carótida externa, quando presente, foi sempre mínima e proveniente das artérias septais, convergindo com as artérias etmoidais no ponto da fístula. Estes factos aparentam apoiar a hipótese de se tratar de abertura de anastomoses.

A drenagem venosa é mais variável e pode ser efectuada para o seio sagital superior<sup>2,19,20</sup>, por vezes através das veias corticais<sup>8,12,13,17,21,24</sup>, veia silviana superficial<sup>10,22</sup>, veias subfrontais<sup>5,19</sup>, veia oftálmica superior<sup>10</sup> e seio cavernoso <sup>2,24</sup>. A drenagem para o seio cavernoso está associada a sintomas oculares<sup>24</sup>.

Na nossa série a drenagem venosa foi exclusivamente para o seio sagital superior em um caso, para as veias silvianas em dois casos, para estes dois sistemas em um caso e para o seio sagital superior e o seio cavernoso em um caso.

É frequente encontrar referências à dilatação aneurismática na veia de drenagem<sup>2,3,18,19,24</sup> o que foi considerado causa da hemorragia. Brown et al<sup>8</sup> salientaram que os doentes que sofriam de FD com uma variz venosa na veia de drenagem têm um maior risco de hemorragia,

enquanto não foi observada nenhuma hemorragia nos doentes com FD sem variz<sup>23</sup>.

Dos três casos na nossa série com aneurismas venosos no andar anterior, dois apresentaram hemorragia frontal, sugerindo rupturas nestes pontos, mas o outro caso permanece assintomático sete anos após o diagnóstico.

Os dois casos sem aneurismas venosos apresentaram hemorragias parietais. Cremos que a hemorragia pode resultar da hipertensão venosa no seio sagital superior, o que não aparenta ser frequente nas FD com outras localizações.

Após a preparação deste artigo apresentou-se na nossa instituição um sexto caso de FD do andar anterior com uma hemorragia de grandes dimensões no lobo frontal direito que deteriorou rapidamente e resultou na morte do doente.

Os nosso casos estão em concordância com as afirmações na literatura sobre o comportamento mais agressivo deste tipo de FD.

O tratamento cirúrgico é um método terapêutico eficaz e deve ser realizado assim que possível. Pode ser feita uma tentativa de embolização mas isto é tecnicamente difícil e frequentemente caro de mais.

# **BIBLIOGRAFIA**

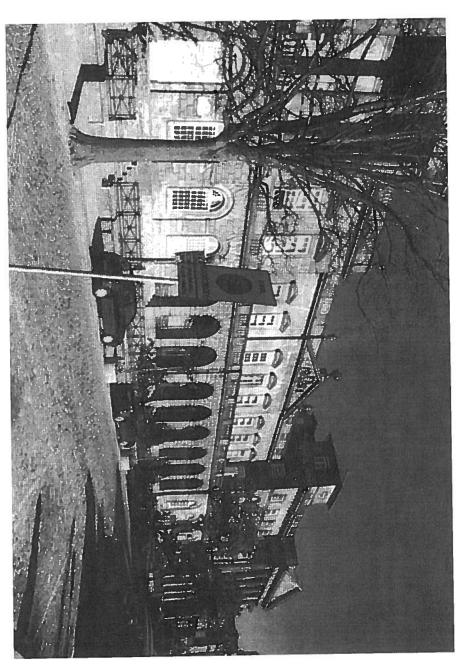
- 1. AWAD IA, LITTLE JR, AKRAWI WP, AHL J: Intracranial dural arteriovenous malformations: factors predisposing to an aggressive neurological course. J Neurosurg 1990; 72: 839
- 2. MARTIN NA, KING WA, WILSON CB, NUTIK S, CARTER LP, SPETZLER RF: Management of dural arteriovenous malformations of the anterior cranial fossa. J Neurosurg 1990; 72: 692
- HALBACH VV: Embolization of Dural Arteriovenous Malformations.
  In: Interventional Neuroradiology. Valavanis A (eds). Springer, Berlin Heidelberg New York, 1993; pp 35
- 4. KOBAYASHI H, HAYASHI M, NOGUCHI Y, TSUJI T, HANDA Y, CANER HH: Dural arteriovenous malformations in the anterior cranial fossa. Surg Neurol 1988; 30: 396
- TOKUNAGA T, HAYASHI T, SHOJIMA K, UTSUNOMIYA H, MATSUO M: Dural arteriovenous malformation of the anterior fossa with subarachnoid hemorrhage. No Shinkei Geka 1986; 14 (abstract): 1391
- LANG J, SCHAFER K: Ethmoidal arteries: origin, course, regions supplied and anastomoses. Acta Anat 1979; 104 (abstract):183
- KIKUCHI K, KOWADA M: Anterior fossa dural arteriovenous malformation supplied by bilateral ethmoidal arteries. Surg Neurol 1994;
   56
- REUL J, THRON A, LABORDE G, BRUCKMANN H: Dural arteriovenous malformations at the base of the anterior cranial fossa: report of nine
- 9. KAPLAN SS, OGILVY CS, CROWELL RM: Incidentally discovered arteriovenous malformation of the anterior fossa dura. Br J

Neurosurg 1994; 8: 755, cases. Neuroradiology 1993; 35: 388

- 10. HASHIMOTO H, IIDA J, MASUI K, NISHI N, YONEZAWA T, SAKAKI T: Dural arteriovenous malformation of the anterior cranial fossa occurring after bifrontal craniotomy. Surg Neurol 1998; 49: 47,
- 11. HERMAN JM, SPETZLER RF, BEDERSON JB, KURBAT JM, ZABRAMSKI JM: Genesis of a dural arteriovenous malformation in a rat model. J Neurosurg 1995; 83: 539,
- 12. NAKAGAWA K, TAKASATO Y, ITO Y: A case of dural arteriovenous malformation in the anterior cranial fossa presenting with intracranial hemorrhage. No To Shinkei 1994; 46 (abstract): 387
- 13. LASJAUNIAS P, BERENSTEIN A: Surgical neuroangiography-Functional anatomy of cranio-facial arteries. Springler, Berlin Heidelberg New York, 1987.
- 14. COGNARD C, GOBIN YP, PIEROT L, BAILLY AL, HOUDART E, CASASCO A, CHIRAS J, MERLAND JJ: Cerebral dural arteriovenous fistulas: clinical and angiographic correlation with a revised classification of venous drainage. Radiology 1995; 194: 671
- 15. BASKAYA MK, SUZUKI Y, SEKI Y, NEGORO M, AHMED M, SUGITA K: Dural arteriovenous malformations in the anterior cranial fossa. Acta Neurochir (Wien) 1994; 129: 146
- 16. ESPINOSA JA, MOHR G, ROBERT F: Dural arteriovenous malformations of the ethmoidal region: report of two cases. Br J Neurosurg 1993: 7: 431
- 17. FIORI L, PARENTI G, PUGLIOLI M, PADOLECCHIA R: Anterior fossa dural arteriovenous malformation discovered by means of PW-Doppler examination. Neurol Res 1995; 17: 226
- 18. GENTRY LR: Anatomy of the orbit. Neuroimaging Clin North Am 1998; 8:171
- 19. ITO J, IMAMURA H, KOBAYASHI K, TSUCHIDA T, SATO S: Dural arteriovenous malformations of the base of the anterior cranial fossa. Neuroradiology 1983; 24: 149
- 20. HALBACH VV, HIGASHIDA RT, HIESHIMA GB, WILSON CB, BARNWELL SL, DOWD CF: Dural arteriovenous fistulas supplied by ethmoidal arteries. Neurosurgery 1990; 26: 816
- 21. BROWN RD JR, WIEBERS DO, NICHOLS DA: Intracranial dural arteriovenous fistulae: angiographic predictors of intracranial hemorrhage and clinical outcome in nonsurgical patients. J Neurosurg 1994; 81: 531,
- 22. TAKAHASHI Y, YAMAMOTO T, ABE T, TOKUTOMI T, YOSHIMURA F, YUGE T, MIYAGI J, SHIGEMORI M: Transient global amnesia and dural arteriovenous fistula of the anterior cranial fossa. Kurume Med J 1996; 43(abstract): 223
- 23. OGAWA T, OKUDERA T, MIYAUCHI T, INUGAMI A, UEMURA K, YASUI N: Anterior cranial fossa dural arteriovenous fistula with a varix mimicking an anterior communicating artery aneurysm. Neuroradiology 1996; 38: 252
- 24. OKADA T, MATSUDA M, HANDA J: Association of cerebral aneurysm and dural arteriovenous malformation in the anterior cranial fossa: a case report. No Shinkei Geka 1988; 16(abstract): 903
- 25. MAYFRANK L, REUL J, HUFFMANN B, BERTALANFFY H, SPETZGER U, GILSBACH JM: Microsurgical interhemispheric approach to dural arteriovenous fistulas of the floor of the anterior cranial fossa. Minim Invasive Neurosurg

1996; 39(abstract): 74-77

26. ISHIKAWA T, HOUKIN K, TOKUDA K, KAWAGUCHI S, KASHIWABA T: Development of anterior cranial fossa dural arteriovenous malformation following head trauma. J Neurosurg 1997; 86: 291



Hospital Geral de Santo António. Porto