

# HÉMORRAGIE RETARDÉE APRÈS UNE OBLITÉRATION COMPLÈTE D'UNE MALFORMATION ARTERIOVEINEUSE CÉRÉBRALE TRAITÉE PAR RADIOCHIRURGIE.

A. DIOP<sup>2</sup>, M. FAYE<sup>2</sup>, M.E.H. CISSE<sup>2</sup>, I. P. GYOTAT<sup>1</sup>, M. MBAYE<sup>2</sup>, M. CODE BA<sup>2</sup>

1. Hôpital neurologique de LYON (France), Neurochirurgie D : Unité de référence de pathologies vasculaires

2. Service de Neurochirurgie du CHNU de FANN, Sénégal

**RESUME :** La malformation artérioveineuse cérébrale est une pathologie vasculaire caractérisée par un réseau vasculaire malformatif réalisant des connexions anormales entre les artères et les veines cérébrales qui induisent une élévation anormale de la pression sanguine dans la malformation et dans les veines qui la drainent avec un risque de rupture vasculaire. La radiochirurgie s'est longtemps imposée comme une alternative valable à la chirurgie dans le traitement des malformations artérioveineuses cérébrales. L'angiographie numérisée reste l'examen de référence pour le diagnostic et le suivi des malformations artérioveineuses cérébrales, notamment pour définir l'oblitération complète. Des incidents de saignement à distance d'une oblitération complète rapportés dans la littérature ne sont pas des situations isolées, il est très difficile même avec une angiographie de juger d'une oblitération complète. Nous rapportons le dossier d'un patient de 56 ans présentant une malformation artérioveineuse pariéto-occipitale de grade III de Spetzler initialement traitée par radiochirurgie, déclaré guérie sur une imagerie de contrôle à trois ans de l'irradiation et qui a présenté vingt ans après cette irradiation un nouvel épisode hémorragique avec un résidu malformatif de découverte peropératoire confirmé à l'histologie alors que l'artériographie de contrôle préopératoire était négative.

**Mots clés :** Malformation artérioveineuse cérébrale, Radiochirurgie, Angiographie, Saignement.

**ABSTRACT** Cerebral arteriovenous malformation is a vascular disease characterized by vascular malformation performing abnormal connections between arteries and cerebral veins which induce abnormal elevation of blood pressure in the malformation and the veins draining it with a risk of vascular rupture. The radiosurgery has long established itself as an applicable alternative to surgery in the treatment of cerebral arteriovenous malformations. Digital angiography remains the gold standard for the diagnosis and monitoring of brain arteriovenous malformations, mainly to define complete obliteration. Some episodes of bleeding, away from a complete obliteration, were reported in the literature and are not isolated cases; it is very difficult even with angiography to judge a complete obliteration. We report here the record of a 56-year patient with an pariéto-occipital arteriovenous malformation classified Spetzler grade III initially treated with radiosurgery, then declared cured over a three-year control of imaging radiation, who had twenty years after irradiation, a new bleeding episode and the discovery during operation of the malformation's residue which was confirmed histologically while preoperative control arteriography was negative.

**Key words :** Cerebral arteriovenous malformation, Radiosurgery, Angiography, Bleeding.

## INTRODUCTION

La prise en charge thérapeutique des malformations artério-veineuses cérébrales s'est profondément modifiée après confirmation de l'efficacité des techniques d'embolisation endovasculaire et de la radiochirurgie stéréotaxique. L'indication de cette dernière concernait initialement essentiellement les malformations artério-veineuses cérébrales de petite taille et non rompues. La radiochirurgie pouvait alors être utilisée seule ou en traitement adjuvant associé à la résection chirurgicale ou au traitement

endovasculaire [1]. Cependant, les stratégies thérapeutiques évoluent au cours du temps, dans le sens d'un traitement de malformations de plus en plus grosses et également dans le sens d'un traitement des patients le plus souvent par radiochirurgie en première intention, sans faire précéder d'une embolisation [2]. L'angiographie numérisée reste l'examen de référence pour définir l'oblitération complète [3]. La survenue d'un épisode hémorragique après une oblitération complète reste rare. Nous rapportons le dossier d'un patient de 56 ans présentant une

malformation artério-veineuses cérébrales pariéto-occipitale gauche de grade III de Spetzler initialement traité par radiochirurgie, déclaré guéri sur une imagerie de contrôle à trois ans de l'irradiation et qui a présenté à vingt ans de cette irradiation un nouvel épisode hémorragique avec un résidu malformatif angiographiquement occulte de découverte peropératoire confirmé à l'histologie.

### CAS CLINIQUE

Il s'agit d'un patient de 56 ans qui a présenté à sa première admission une hémianopsie latérale homonyme droite et des troubles sensitifs dans l'hémicorps droit. Le scanner cérébral complété par une artériographie cérébrale (Fig. 1) ont permis la mise en évidence d'une malformation artérioveineuse pariéto-occipitale gauche de grade III de Spetzler. Il a été traité en 1992 par radiochirurgie multi faisceaux (LINAC). L'angio-IRM cérébrale de contrôle réalisé à trois ans de sa radiochirurgie confirmait l'éradication complète de sa malformation. Il avait alors bénéficié d'une surveillance clinique et imagerie. En juin 2012, il a présenté une hémianopsie latérale homonyme associée à des céphalées extrêmement violentes.

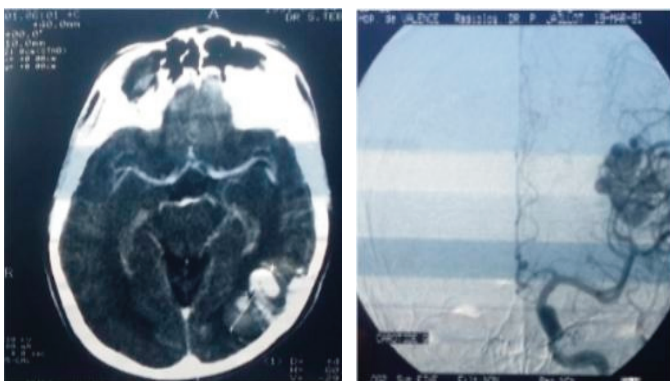
Le scanner cérébral réalisé dans ce contexte montrait l'existence d'un hématome intra parenchymateux pariéto-occipital gauche. L'artériographie n'avait pas mis en évidence de

résidu de malformation artérioveineuse. Compte-tenu de la bonne amélioration du patient l'indication d'une intervention qui avait été évoquée n'est pas retenue.

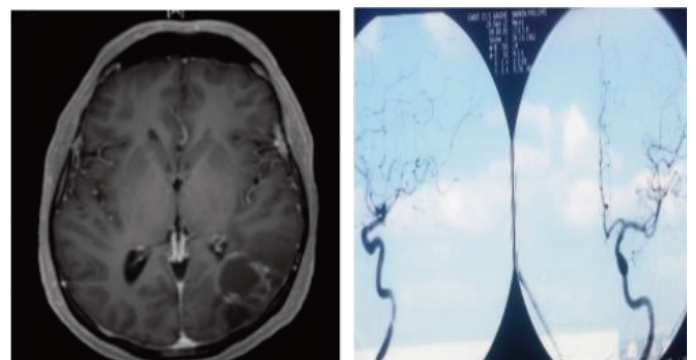
En avril 2016 le patient a présenté un nouvel épisode hémorragique avec un hématome pariéto-occipital gauche toujours dans le territoire de son ancien angiome et de l'irradiation. Cet hématome s'associe à un remaniement kystique et à un important œdème. Une nouvelle artériographie de contrôle ne montre toujours pas de shunt artérioveineux précoce visible. L'IRM cérébrale montre un aspect de processus expansif prenant le contraste associé à 2 ou 3 localisations kystiques avec des niveaux hématiques intra kystiques (Fig.2). Dans ce contexte l'indication d'une intervention chirurgicale initialement évoquée a finalement été retenue. En peropératoire, on retrouve une lésion nodulaire partiellement hémorragique parcourue de vaisseaux les uns thrombosés les autres non. L'examen extemporané réalisé sur le tissu pseudo tumoral ne retrouvait aucune trace de cellule tumorale.

L'aspect anatomopathologique est finalement celui d'une MAVc remaniée et probablement incomplètement thrombosée avec plusieurs cavités kystiques remplies de sang lysé. Il existe des structures vasculaires oblitérées avec de rares vaisseaux irréguliers associées à des calcifications.

Les suites opératoires sont simples.



**Fig. 1 : Angioscanner cérébrale (A) et artériographie (B) montrant une malformation artérioveineuse pariéto-occipitale gauche de grade III de Spetzler.**



**Fig. 2 :IRM cérébrale T2 GADO (A) montrant un aspect de processus expansif prenant le contraste associé à des localisations kystiques avec des niveaux hématiques intra kystiques avec une artériographie cérébrale normale (B)**

## DISCUSSION

Le traitement d'une MAVc a pour objectif d'oblitérer la malformation, afin de prévenir ou d'éviter le risque hémorragique ; il peut faire appel à plusieurs options thérapeutiques [4]. L'indication de la radiochirurgie concernait initialement essentiellement les MAVc de petite taille et non rompues. La radiochirurgie pouvait alors être utilisée seule ou en traitement adjuvant associé à la résection chirurgicale ou au traitement endovasculaire. Cependant, les stratégies thérapeutiques évoluent au cours du temps, dans le sens d'un traitement de malformations de plus en plus grosses, en planifiant parfois d'emblée des sessions de radiochirurgie répétées 2 ou 3 fois en fonction de la taille du nidus et également dans le sens d'un traitement des patients le plus souvent par radiochirurgie en première intention, sans faire précéder d'une embolisation [1, 2].

L'angiographie numérisée reste l'examen de référence pour le diagnostic et le suivi des MAVc [3], notamment pour définir l'oblitération complète. L'oblitération complète de la malformation survient le plus souvent entre 1 et 3 ans après l'irradiation radiochirurgicale exposant ainsi les patients à un risque hémorragique [6]. Elle est définie comme un aspect angiographique caractérisé par une circulation normale, une disparition complète des vaisseaux anormaux constituants du nidus initial et une normalisation du drainage veineux en provenance de la zone pathologique.

Les études qui comparent le risque hémorragique avant et après radiochirurgie montrent une diminution du risque hémorragique liée à l'oblitération complète. Dans l'étude de Maruyama et al. [6], le risque d'hémorragie pendant la période de latence (avant l'oblitération) n'est pas différent du risque avant radiochirurgie. En revanche, le risque est divisé par 4 après oblitération. Cependant, cette étude mentionne 6 cas d'hémorragie après oblitération considérée comme complète dont le mécanisme n'a pu être expliqué. Notre patient a présenté un nouvel épisode hémorragique dans le secteur de la malformation 20 ans après son irradiation alors que l'artériographie n'avait pas montré de résidu malformatif. Ce résultat est conforme aux données, bien que limitée, du nombre de cas rapportés dans la littérature. En effet, la survenue

d'une hémorragie après traitement par la radiochirurgie d'une MAVc avec la confirmation angiographique d'une oblitération complète a été rapportée dès 4 ans et aussi tard que 11 ans suivant la radiochirurgie [7, 8]. Grady et al. [9] estimaient l'incidence de cette constatation à moins de 0,25 % des cas.

Notre cas tout comme les autres rapportés dans la littérature démontrent qu'il y a un risque minime non quantifié d'hémorragie dans la zone angiographiquement oblitérée à la suite d'un traitement par la radiochirurgie et que ces épisodes hémorragiques ne sont pas systématiquement associés à des lésions à l'angiographie.

Une hypothèse est que les tissus lésés au niveau de la MAVc guérissent par l'intermédiaire des médiateurs inflammatoires, ayant pour résultat la formation du tissu de granulation et l'anomalie résiduelle de signal sur IRM représentant des vaisseaux perméables à risque pour l'hémorragie. L'hémorragie qui se produit à partir de ces tissus est généralement locale et non catastrophique [9].

Notre patient a bénéficié d'une intervention chirurgicale, en peropératoire, on retrouve une lésion nodulaire partiellement hémorragique parcourue de vaisseaux les uns thrombosés les autres non. L'examen extemporané réalisé sur le tissu pseudo tumoral ne retrouvait aucune trace de cellule tumorale.

L'aspect anatomo-pathologique est finalement celui d'une MAVc remaniée et probablement incomplètement thrombosée avec plusieurs cavités kystiques remplies de sang lysé. Il existe des structures vasculaires oblitérées avec de rares vaisseaux irréguliers associées à des calcifications. Les suites opératoires sont simples.

Ces résultats histologiques variés indiquent qu'il peut y avoir un certain nombre de phénomènes angiographiquement occultes qui portent un risque d'hémorragie chez les patients présentant des MAVc traitées par radiochirurgie. Ceux-ci incluent le tissu de granulation dans la zone de la MAVc oblitérée, le nidus résiduel et les lits capillaires immatures dans le tissu irradiée.

## CONCLUSION

La radiochirurgie peut être une alternative sûre à la chirurgie dans le traitement des

malformations artérioveineuse cérébrale. La survenue d'une hémorragie retardée après une oblitération complète à l'angiographie reste rare. Notre observation conforte les quelques cas rapportés dans la littérature bien actuellement limités. En effet, le risque d'hémorragie retardé après la confirmation angiographique de l'oblitération d'une malformation artérioveineuse cérébrale chez les patients traités par radiochirurgie n'est pas nul. Un suivi régulier à long terme des patients traités par radiochirurgie est donc nécessaire pour le diagnostic et la prise en charge de ces hémorragies retardées.

### REFERENCES

- [1] OGILVY CS, STIEG PE, AWAD I, BROWN RD JR, KONDZIOLKA D, ROSENWASSER R, ET AL : AHA Scientific Statement: Recommendations for the management of intracranial arteriovenous malformations: a statement for healthcare professionals from a special writing group of the Stroke Council, American Stroke Association. *Stroke* 32:1458–1471, 2001.
- [2] JOKURA H, KAWAGISHI J, SUGAI K, AKABANE A, BOKU N, TAKAHASHI K. Gamma knife radiosurgery for arteriovenous malformations: the Furukawa experience. *Prog Neurol Surg* 2009 ; 22:20-30
- [3] GAILLOUD P. Endovascular treatment of cerebral arteriovenous malformations. *Tech Vasc Interv Radiol* 2005 ; 8 (3) : 118-28.
- [4] Medical Services Advisory Committee. Gamma knife radiosurgery. Canberra: Commonwealth of Australia; 2006
- [5] IZAWA M, HAYASHI M, CHERNOV M, NAKAYA K, OCHIAI T, MURATA N, ET AL. Long-term complications after gamma knife surgery for arteriovenous malformations. *J Neurosurg* 2005; 102 (Suppl):34-7.
- [6] MARUYAMA K, SHIN M, TAGO M, KISHIMOTO J, MORITA A, KAWAHARA N. Radiosurgery to reduce the risk of first hemorrhage from brain arteriovenous malformations. *Neurosurgery* 2007; 60 (3) 453-8
- [7] SHIN M, KAWAHARA N, MARUYAMA K, TAGO M, UEKI K, KIRINO T: Risk of hemorrhage from an arteriovenous malformation confirmed to have been obliterated on angiography after stereotactic radiosurgery. *J Neurosurg* 102:842–846, 2005
- [8] SZEIFERT GT, SALMON I, BALÈRIAUX D, BROTCHE J, LEVIVIER M: Immuno histochemical analysis of a cerebral arteriovenous malformation obliterated by radiosurgery and presenting with re-bleeding. *Case report. Neurol Res* 25 : 718–721, 2003
- [9] CONOR GRADY, MD,1 OMAR TANWEER, MD,1 DAVID ZAGZAG, MD,1,2 JAFAR J. JAFAR, MD,1 PAUL P. HUANG, MD,1 Delayed hemorrhage from the tissue of an occluded arteriovenous malformation after stereotactic radiosurgery: report of 3 cases. *J neurosurg* June 10, 2016.

### ABREVIATIONS

MAVc = Malformation Artério-Veineuse cérébrale

IRM=Imagerie par Résonance Magnétique.