

## ·心脏介入 Cardiac intervention·

# 儿童先天性冠状动脉瘘——介入治疗和结果

高伟，周爱卿，余志庆，李奋，钟玉敏，张玉奇，黄芙蓉，孙锟

**【摘要】**目的 探讨儿童先天性冠状动脉瘘介入治疗指征、方法学和并发症预防。方法 19 例先天性冠状动脉瘘患儿接受了经导管应用弹簧圈或 Amplatzer 动脉导管未闭(PDA)封堵器或 Amplatzer 无聚酯纤维栓子(Amplatzer plug)的介入治疗。其中 1 例为冠状动脉瘘术后残余漏合并 PDA。结果 19 例冠状动脉瘘患儿瘘口最窄处平均直径( $3.7 \pm 1.6$ )mm(2.5~8.2 mm)。右冠状动脉瘘 11 例，左冠状动脉前降支或回旋支瘘 8 例。与右心室交通 14 例，与右房交通 5 例。肺动脉平均压力为( $28.0 \pm 5.0$ )mmHg(25.0~67.0 mmHg)，肺动脉与体循环血流比值为  $1.6 \pm 0.8$ (1.0~2.3)。10 例植入 1 枚 Gianturco 弹簧圈，3 例植入 2~4 枚 Gianturco 弹簧圈，应用 Duct-Occlud 弹簧圈 3 例。另有 2 例应用 Amplatzer PDA 封堵器，应用 Amplatzer plug 1 例。1 例冠状动脉瘘外科术后残余漏并合并 PDA 者，同时封堵 PDA 成功。即刻封堵率为 55.6%(10/18)，术后 1 个月及 1 年封堵率分别为 88.9%(16/18), 100%(18/18)；1 例右冠状动脉右室瘘，在封堵后即刻发生弹簧圈漂移至左肺小动脉，用异物钳取出后再行外科手术。随访 3 个月~11 年无再通和封堵器移位。结论 介入治疗先天性冠状动脉瘘经济、安全、有效。

**【关键词】** 冠状动脉瘘；介入治疗；封堵术

中图分类号：R541.1 文献标识码：A 文章编号：1008-794X(2006)-11-0648-04

**Congenital coronary artery fistula in children: The interventional management and outcome** GAO Wei, ZHOU Ai-qing, YU Zhi-qing, LI Fen, ZHONG Yu-min, ZHANG Yu-qi, HUANG Mei-rong, SUN Kun. Department of Cardiology, Xinhua Hospital, Shanghai Children's Medical Center Affiliated to School of Medicine, Shanghai Jiaotong University, Shanghai 200127, China

**[Abstract]** **Objective** To assess the safety and efficacy of transcatheter closure of congenital coronary artery fistulas(CAFs). **Methods** Retrospective analysis was performed on 19 patients mean age of ( $5.5 \pm 4.1$ ) years treated from February 1995 to December 2005 with transcatheter closure of CAFs using transcatheter spring coil embolization, Amplatzer PDA occluder or Amplatzer plug. One case had a residul fistula postoperatively associated with patent ductus arteriosus (PDA). **Results** The abnormal parameters included mean fistula diameter( $3.7 \pm 1.6$ )mm(2.5~8.2 mm),pulmonary mean pressure( $28.0 \pm 5.0$ )mmHg(25.0~67.0 mmHg)and pulmonary to systemic shunt(Qp/Qs) $1.6 \pm 0.8$ (1.0~2.3). The sites of the fistulas were originated in right coronary artery 11, left anterior descending coronary artery or left circumflex coronary artery 8. Abnormal communication sites of these fistulas were to right ventricle in 14 and right atrium in 5. Various occlusion devices used to close these fistulas included one Gianturco coil in 10, 2~4 Gianturco coils in 3, Duct-Occlud in 3, Amplatzer duct occluder in 2 and Amplatzer plug in 1. The post-operative residul fistula with PDA was treated successfully with PDA occlusion. The immediate, one month and one year complete occlusion rates were 55.6%(10/18), 88.9%(16/18), 100%(18/18),respectively. The coil slipped into the left pulmonary artery in 1 case and correction was obtained by retrieving with forceps. Follow-up studies at 3 months to 4.3 years showed complete abolition of shunt in all patients with no evidence of recanalization leading to recurrences of shunt. **Conclusion** Transcatheter closure of CAFs is a safe and effective alternative to surgical repair. (J Intervent Radiol, 2006, 15: 648-651)

**[Key words]** Coronary artery fistula; Interventional management; Occlusion

先天性冠状动脉瘘 (coronary artery fistula, CAF) 是一种少见的先天性心脏病, 病变部位可以是在冠状动脉主干或其分支与任何一心腔之间。对有症状 CAF 施行经导管封堵介入治疗或外科手术已得到大家的认可<sup>[1,2]</sup>。本研究总结了我院 1995 年 2 月 - 2005 年 12 月 19 例儿童先天性 CAF 施行介入治疗的资料。

## 1 材料与方法

### 1.1 研究对象

1995 年 2 月至 2005 年 12 月, 19 例先天性 CAF 患儿接受了经导管应用弹簧圈或 Amplatzer 动脉导管未闭(PDA)封堵器或 Amplatzer 无聚酯纤维栓子 (Amplatzer plug) 的介入治疗。其中男 12 例, 女 7 例; 年龄 3 个月 ~ 18 岁, 平均 ( $5.5 \pm 4.1$ ) 岁。所有病例于术前经体格检查、心电图、X 线胸片及经胸超声心动图证实为先天性 CAF。其中 1 例为 CAF 术后残余漏并合并 PDA。

### 1.2 方法

1.2.1 介入材料 Gianturco 弹簧圈、pfm Duct-Occlud、Nit-Occlud 弹簧圈和 Amplatzer 动脉导管未闭封堵器或 Amplatzer 无聚酯纤维栓子 (Amplatzer plug)。

1.2.2 治疗方法 在全麻或局麻下穿刺股动脉和股静脉并行肝素化 (100 u/kg), 作常规右心导管术, 测定肺循环/体循环比值和肺动脉压力。作左心室、升主动脉、和(或)选择性冠状动脉造影等, 了解冠状动脉的走向及判断病变的位置和瘘口大小。再根据病变各自特点选择上述封堵器予以封堵。封堵的方法有: ① 经动脉途径直接封堵法, 即将封堵器经动脉直接送入瘘管最窄处; ② 经静脉途径逆行封堵方法, 即建立动静脉轨道, 再沿已建立的轨道经静脉逆行封堵。术前 1 d 至术后 2 d 静脉给予抗生素预防感染。术后未抗凝。

### 1.2.3 随访

1.2.3.1 即刻随访: 术后 2 h 作 TTE 检查, 观察封堵器情况及有无残余分流、心包积液等, 并测定左心室收缩功能等。

1.2.3.2 常规随访: 术后 1、3、6 个月及 1 年作心电图及心超检查, 观察封堵器情况及有无心律失常表现。以后再根据情况每半年或 1 年随访 1 次。

## 2 结果

19 例 CAF 患儿瘘口最窄处平均直径 ( $3.7 \pm$

$1.6$ ) mm ( $2.5 \sim 8.2$  mm)。右 CAF 11 例, 冠状动脉左前降支或回旋支瘘 8 例。与右心室交通 14 例, 与右房交通 5 例。肺动脉平均压为 ( $28.0 \pm 5.0$ ) mmHg ( $25.0 \sim 67.0$  mmHg), 肺动脉与体循环血流比值为  $1.6 \pm 0.8$  ( $1.0 \sim 2.3$ )。10 例植入 1 枚 Gianturco 弹簧圈, 3 例植入 2 ~ 4 枚 Gianturco 弹簧圈, 应用 Duct-Occlud 弹簧圈 3 例。另有 2 例应用 Amplatzer PDA 封堵器, 应用 Amplatzer plug 1 例。所选弹簧圈直径大于所需封堵冠状动脉直径的 20% ~ 30%; Amplatzer PDA 封堵器和 Amplatzer plug 大于将要封堵的 CAF 瘘口直径的 2 ~ 3 mm。1 例 CAF 外科术后残余漏并合并 PDA 者, 同时封堵 PDA 成功。即刻封堵率为 55.6% (10/18), 术后 1 个月及 1 年封堵率分别为 88.9% (16/18) 和 100% (18/18); 1 例右冠状动脉右室瘘, 在封堵后即刻发生弹簧圈漂移至左肺小动脉, 用异物钳取出后再外科手术。随访 3 个月 ~ 11 年无再通和封堵器移位, 也无栓塞及心内膜炎等并发症。其中 17 例应用经动脉直接封堵方法, 2 例则采用经静脉途径逆行封堵。

## 3 讨论

CAF 占所有先天性心脏病的 0.3% ~ 0.4%。1866 年 Krause 首先描述这种先天性畸形。可为先天性或获得性(外伤、感染或医源性)。

CAF 大多为单支瘘, 占 74% ~ 90%, 2 支者少见, 为 10% ~ 26%。临幊上右 CAF 多见, 为 50% ~ 60%。冠状动脉与右心系统交通占 90%; 与左心系统交通仅 10%<sup>[2-4]</sup>。CAF 可发生在冠状动脉主干、冠状动脉分支的中段或远端细小分支。

临幊上如瘘口小, 一般无症状; 如瘘口大, 入右侧心腔, 右心负荷增加, 肺血流量增多, 肺动脉高压。入左侧心腔, 血流动力学类似主动脉关闭不全的表现, 有心肌缺血, 心衰、心肌梗死等。另冠状动脉血流增多, 损伤动脉内膜, 造成弹性纤维增加, 早期发生粥样硬化或动脉瘤, 形成血栓导致心肌梗死。瘘口远端冠状动脉血流量减少, 局部心肌供血不足。

我们中心近 30 年共作心导管和心血管造影 11 312 例, 其中发现 CAF 61 例 (0.57%)。单支 CAF 60 例, 多支者仅 1 例。右 CAF 34 例 (55.7%), 左 CAF 26 例 (42.6%)。CAF 与右心交通 53 例 (86.9%), 与左心交通 7 例 (11.5%), 1 例与左右心室交通。

本组 19 例病例介入治疗结果显示,技术成功 18 例(94.7%),即刻封堵率为 55.6%(10/18),术后 1 个月及 1 年封堵率分别为 88.9%(16/18)和 100%(18/18)。在最长的随访 11 年中未出现严重并发症及需外科手术干预病例,这与国外一系例报道一致<sup>[5,9]</sup>。由此可见介入封堵术在先天性 CAF 治疗中,具有与外科开胸手术同样的效果,可作为外科开胸手术修补的替代治疗。

由于儿童心脏病有其独特的生理特性和解剖特点,故实际选择封堵器及手术操作与成人不尽相同,我们的体会如下。

### 3.1 病例选择

适合做介入治疗的病例为 CAF 瘘管长而扭曲而且出口较细小;合并冠状动脉根部扩张,远端为盲端而瘘口邻近无重要冠脉分支。禁忌证主要为 CAF 发生在单一冠状动脉或左主干上、欲封堵的冠状动脉处下部有正常冠状动脉分支供血或 CAF 瘘管过粗难以封堵者。

### 3.2 心血管造影

一般我们可选择左心室长轴斜位、肝锁位、右前斜位和升主动脉正侧位。但肝锁位较常用,即按照左前斜 40°,同时向头成角 40°,该体位最易显示 CAF 瘘入哪个心脏,而且左、右冠状动脉开口处也分开良好,便于确定哪支 CAF(图 1)。如上述体位造影仍不能清晰显示病变部位,则需作选择性冠状动脉造影,本病例组只有 2 例做了选择性冠状动脉造影。

### 3.3 堵塞试验

升主动脉或选择性冠状动脉造影显示 CAF 解剖类型、冠状动脉走向、有无相关侧支血管、瘘口大小和数量。有侧支血管者需作堵塞试验。堵塞试验是封堵 CAF 的重要一步。其方法为选择一球囊预先完全封堵 CAF,然后观察 15~20 min。如患者出现心前区疼痛等心肌缺血表现或心功能不全加重,心电图上出现 ST 段和 T 波缺血样改变,则应该立即停止封堵。目前已可以用可控封堵器来进行封堵试验。封堵后如心电图无缺血样改变,临床也无症状,即可释放封堵器。早期我们对瘘口近心端有冠状动脉正常小分支者,均使用球囊导管做封堵试验,而现在我们一般使用可控封堵器,封堵后观察 10 min 左右,心电图和临床无变化,即释放封堵器。

### 3.4 封堵方法

经动脉途径直接封堵法,即将封堵器经动脉直接送入瘘管最窄处。该方法一般用于瘘管较短、途径不曲折、瘘口较小的 CAF 畸形,往往选用弹簧圈或较小的封堵器(图 2)。由于选用的输送导管也小,因此动脉损伤的并发症少。另外操作简便。本组大部分病例采用此方法。还有一种方法是经静脉途径逆行封堵方法,主要用于瘘管较长、途径曲折、瘘口大的 CAF。该方法较烦琐,需建立从左心系统-瘘口-右心系统的轨迹。但优点是减少大的输送鞘对动脉内膜的损伤,而且术后残余漏少。本组有 2 例应用 Amplatzer PDA 封堵器采用此方法封堵(图 3)。

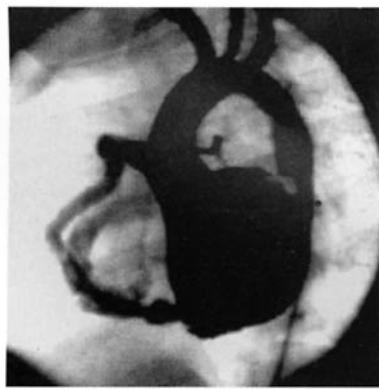


图 1 肝锁位左心室造影显示右冠状动脉-右室瘘

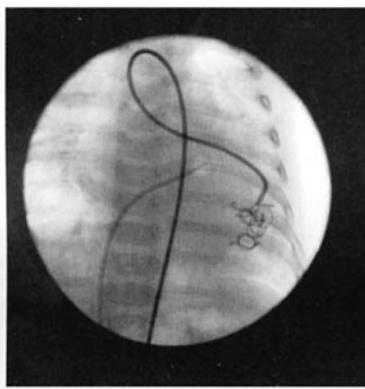


图 2 经动脉途径弹簧圈封堵左冠状动脉-右室瘘

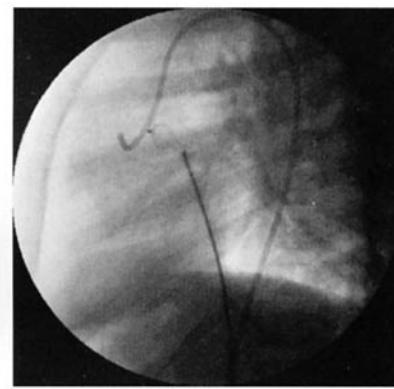


图 3 经静脉途径 Amplatzer 动脉导管未闭封堵器逆行封堵右冠状动脉右房瘘

我们所选弹簧圈直径一般大于所需封堵冠状动脉直径的 20% 以上,弹簧圈的位置尽量释放在瘘口。一般第 1 枚弹簧圈宜大一些,后放的弹簧圈可稍小。而所选的其他封堵器一般大于将要封堵的 CAF 口直径的 2~3 mm 即可。

### 3.5 主要并发症

**封堵器脱落:** 这与封堵器大小的选择有关,而且最多发生在使用非可控弹簧圈中。本组有 1 例早期病例,因选用的非可控弹簧圈过小而发生封堵过程中弹簧圈脱落。其他并发症有心肌缺血或急性心

肌梗死,但术前仔细了解欲封堵的冠状动脉处下部有无正常冠状动脉分支供血及正确的封堵试验,将可避免此并发症的发生。其他并发症有残余分流、心律失常和瘘管壁穿孔、大量心包积液等。

### 3.6 术后抗凝药应用

术后是否需要服用抗凝药物尚有争议。我院 18 例 CAF 封堵术后无一例服用抗凝药物,平均随访 6 年以上未发生栓塞及心肌梗死症状。

从本组成功封堵 18 例 CAF 分析,介入治疗不用体外循环,而且安全、有效,费用低于外科手术。

### [参考文献]

- [1] 周爱卿. 先天性心脏病的介入治疗 [J]. 介入放射学杂志, 2003, 12: 321 - 322.
- [2] Werner B, Wroblewska KM, Pleskot M, et al. Anomalies of the coronary arteries in children[J]. Med Sci Monit, 2001, 7: 1285 - 1291.
- [3] Mavroudis C, Backer CL, Rocchini AP, et al. Coronary artery fistulas in infants and children:a surgical review and discussion

of coil embolization [J]. Ann Thorac Surg, 1997, 63: 1235 - 1242.

- [4] Schumacher C, Roithmaier A, Lorenz HP, et al. Congenital coronary artery fistula in infancy and childhood: diagnostic and therapeutic aspects[J]. Thorac Cardiovasc Surg, 1997, 45: 287 - 294.
- [5] Issenberg HJ. Transcatheter coil closure of a congenital coronary arteriole fistula[J]. Am Heart J, 1990, 120: 1441 - 1443.
- [6] Diaz de la Llera LS, Fournier Andray JA, Gomez Moreno S, et al. Percutaneous occlusion with coils of coronary artery fistulas in adults[J]. Rev Esp Cardiol, 2005, 58: 93 - 96.
- [7] Trehan V, Yusuf J, Mukhopadhyay S, et al. Transcatheter closure of coronary artery fistulas[J]. Indian Heart J, 2005, 56: 132 - 139.
- [8] Apostolopoulou SC, Bonou P, Rammou S. Transcatheter embolization of recanalized coronary fistula with Nit-Occlud device [J]. J Invasive Cardiol, 2004, 16: 215 - 217.
- [9] Thomson L, Webster M, Wilson N. Transcatheter closure of a large coronary artery fistula with the Amplatzer duct occluder[J]. Catheter Cardiovasc Interv, 1999, 48: 188.

(收稿日期:2006-07-06)

## 欢迎订阅 2007 年《介入放射学杂志》

《介入放射学杂志》是我国第一本有关介入放射学基础研究,临床应用等方面的学术性期刊。是中国科技论文统计源期刊(中国科技核心期刊),并已进入俄罗斯《文摘杂志》(AJ of VINITI)、荷兰《医学文摘》(EMBASE)等国际检索系统。据 2005 年国家科技部中国科技论文与引文数据库期刊检索报告,本刊影响因子达 0.591(核心版),扩刊版影响因子达 0.894。杂志的宗旨是介绍介入放射学方面最新的学术成果和临床经验,涉及到神经介入、心脏介入、血管介入、肿瘤介入、非血管介入等各个方面。具有内容丰富、资料新颖、学术性强、编辑规范等特色,创刊以来受到国内外介入放射学界的重视

与欢迎,对我国介入放射学事业起到了积极的推动和促进作用。2002 年被评为第三届华东地区优秀期刊。杂志为大 16 开铜版纸印刷,国内外公开发行。中国标准刊号:ISSN 1008-794X,CN31-1796/R,可在全国各地邮局订购,邮发代号:4-634。也可直接向编辑部邮购。为满足广大作者与读者的需要,本刊自 2007 年起改为月刊,72 页,每月底出版,每期定价 12 元,全年 144 元。

**编辑部地址:**上海市华山路 1328 号

**邮政编码:**200052

**联系电话:**021-62409496