

• 血管介入 Vascular intervention •

猪尾引流导管在淋巴管畸形硬化治疗中的应用及疗效分析

陈昆山, 张靖, 申刚, 周少毅, 李海波, 牛传强, 谭小云, 蒋贻洲, 姜华

【摘要】目的 探讨猪尾引流导管在大囊型及混合型淋巴管畸形硬化治疗中的应用及疗效。**方法** 回顾性分析 2011 年 1 月至 2014 年 1 月确诊并接受猪尾引流导管硬化治疗的 26 例大囊型及混合型淋巴管畸形患儿临床资料。术前彩色超声、CT 或 MRI 检查结合术中穿刺液检查进一步确诊。全身麻醉后在彩色超声引导下置入猪尾引流导管作引流,每日予平阳霉素溶液作冲洗硬化治疗,拔管前囊腔内保留少量平阳霉素溶液;拔管 4 周末达到治愈标准者,予平阳霉素局部注射治疗,4 周后再评估是否继续注射。**结果** 26 例患儿共置入引流导管 26 次,冲洗硬化治疗 105 次。20 例患儿经 1 次置管硬化治疗后达治愈标准,拔管后无需平阳霉素局部注射治疗;2 例局部注射 1 次,2 例局部注射 2 次后达治愈标准;2 例局部注射 2 次后达好转标准。术后随访 6~36 个月,24 例临床症状消除,影像学检查未见瘤体或仅有少量残余硬化病灶,无复发;2 例瘤体缩小 50%以上,影像学检查仍有少量囊性病灶残余,建议继续随访。本组总治愈率为 92.3%,有效率达 100%。**结论** 猪尾引流导管应用于硬化治疗大囊型及混合型淋巴管畸形,具有创伤小、治疗周期短、复发率低及安全有效的特点,值得临床推广应用。

【关键词】 淋巴管畸形;猪尾引流导管置入;硬化治疗;平阳霉素

中图分类号:R551.2 文献标志码:A 文章编号:1008-794X(2016)-02-0106-05

Application of pigtail draining catheter in sclerotherapy of lymphatic malformations and analysis of its efficacy CHEN Kun-shan, ZHANG Jing, SHEN Gang, ZHOU Shao-yi, LI Hai-bo, NIU Chuan-qiang, TAN Xiao-yun, JIANG Yi-zhou, JIANG Hua. Department of Interventional Therapy and Vascular Anomalies, Guangzhou Women and Children's Medical Center, Guangzhou, Guangdong Province 510623, China

Corresponding author: ZHANG Jing, E-mail: fejr@foxmail.com

【Abstract】Objective To discuss the application of pigtail draining catheter in performing sclerotherapy for macrocystic type and mixed type of lymphatic malformations, and to evaluate its efficacy. **Methods** The clinical data of 26 sick children with proved macrocystic type or mixed type of lymphatic malformations, who were admitted to authors' medical center during the period from January 2011 to January 2014 to receive sclerotherapy, were retrospectively analyzed. The diagnosis was further confirmed by preoperative color Doppler ultrasound, CT or MRI as well as laboratory examination of puncture fluid. Under general anesthesia and guided by color Doppler ultrasound the pigtail catheter was inserted into the lesion and fixed on the skin; then sclerotherapy, i.e flushing with pingyangmycin solution, was carried out every day. Before retrieving the catheter, a small amount of pingyangmycin should be left in the cavity. Local injection of pingyangmycin solution had to be used if the clinical result did not meet the standard of cure in 4 weeks after retrieval of the catheter, and 4 weeks later it was needed to determine whether or not another local injection should be performed. **Results** A total of 26 times of pigtail catheter implantation and 105 times flushing sclerotherapy were performed in 26 sick children. In 20 sick children, the clinical result met the standard of cure after a single catheter implantation sclerotherapy, and no additional local injection of pingyangmycin was needed after retrieval of the catheter. In 2 sick children the clinical result met the standard of cure after one

time of local injection; in other 2 sick children the clinical result met the standard of cure after two times of local injection; in other 2 sick children the clinical result met the standard of improvement after two times of local injection. All sick children were followed up for 6–36 months. In 24 sick children the clinical symptoms were eliminated and no tumor or only a small amount of residual lesions were observed on imaging examination, no recurrence occurred. The tumor volume decreased more than 50% in two sick children although a small amount of residual cystic lesion was detected on imaging examination. In this series the total cure rate was 92.3% and the effective rate was up to 100%. **Conclusion** The use of pigtail draining catheter in sclerotherapy for macrocystic type and mixed type of lymphatic malformations has certain advantages, such as less trauma, short treatment cycle, low recurrence rate, safe and effective, etc. Therefore, this technique is worthy of popularization in clinical practice. (J Intervent Radiol, 2016, 25: 106-110)

【Key words】 lymphatic malformation; pigtail draining catheter placement; sclerotherapy; pingyangmycin

淋巴管畸形曾称为淋巴管瘤、淋巴管瘤样增生症等,1995 年国际脉管性疾病研究学会(ISSVA)将其统称为淋巴管畸形^[1]。淋巴管畸形分为微囊型、大囊型和混合型^[2],既往治疗方法以外科手术为主,但疗效不确切及术后并发症使之应用受限。近年许多文献报道大囊型淋巴管畸形经硬化治疗效果良好并得到临床认可,但对分隔较多的大囊型病变及微囊型、混合型病变,治疗次数较多,疗效相对欠佳。本文回顾性分析我中心采用猪尾引流导管作硬化治疗的大囊型及混合型淋巴管畸形患儿完整随访资料,评价该方式治疗效果。现报道如下。

1 材料与方法

1.1 临床资料

回顾性分析 2011 年 1 月至 2014 年 1 月我中心确诊的 26 例淋巴管畸形患儿临床资料,其中男 16 例,女 10 例;年龄 16 d~13 岁,均未接受任何治疗。病变发生于颌面及颈部 10 例,胸壁 6 例,腹壁 2 例,腹腔 5 例,臀部 3 例;大囊型 12 例,混合型 14 例。12 例出生时即伴随肿物,9 例肿物突出出现,3 例腹腔淋巴管畸形患儿腹胀、便秘就诊时超声检查发现,2 例腹腔淋巴管畸形患儿体检时发现。多数患儿无特殊临床症状,6 例颌面及颈部病变患儿伴有不同程度呼吸困难,3 例突发肿物患儿伴有疼痛。专科检查肿物质软,皮温正常,体位移动试验阴性,大囊型病灶可有波动感。为明确各部位病灶大小、范围、囊内分隔情况及与邻近脏器组织关系,所有患儿术前均接受彩色超声、CT 或 MRI 检查。

1.2 治疗方法

1.2.1 置入猪尾引流导管及引流 患儿经影像学确诊后作常规术前检查,结果无异常即进行下一步治疗。手术在气管插管全身麻醉下进行,彩色超声

引导下用 18 G 或 20 G 小儿套管穿刺针(日本 Terumo 公司)经皮穿刺肿物(大囊型穿刺至囊腔中央,混合型穿刺至较大囊腔集中区域;大囊型穿刺路径无特殊要求,混合型沿病灶长轴方向进针),成功后可见淡黄色淋巴液进入套管针尾部,当套管针尾部为血性液体时观察液体是否能凝固,如凝固系刺入血管,应停止操作,拔针压迫止血后更换穿刺点。成功穿刺囊腔后撤出针芯,经外套管置入 0.035 英寸加硬导丝至囊腔内并固定,退出外套管,沿导丝用扩张条作预扩张,完成后在加硬导丝引导下置入猪尾引流导管(美国 Cook 公司),注射对比剂(6 g:20 ml,美国 GE 公司)确定导管位于囊腔内,固定导管并引流淋巴液。引流淋巴液较多时可能会引起血压变化,需密切观察,建议超过 50 ml 时作分次引流。对大囊型病灶,导管前端需保持卷曲;对混合型病灶,因囊腔体积小,不要求导管前端呈卷曲状,甚至可呈伸直状,并可同时置入多条引流导管。

1.2.2 硬化治疗 患儿病灶内淋巴液引流干净后接引流袋,麻醉清醒后返回病房,6 例并发呼吸困难患儿送监护室。每日用注射器将病灶内淋巴液抽尽,再将平阳霉素(8 mg/瓶,哈尔滨莱博通药业有限公司)制成溶液(0.9%氯化钠注射液溶解稀释至 8 ml),注入囊腔并保留 15 min(需变换患儿体位,以利药液与囊腔充分接触),完成后把溶液尽可能抽出。持续引流至每日引流量降至 3~5 ml,即可拔除引流导管,拔管前囊腔内保留上述平阳霉素溶液(按体表面积 8~10 mg/m² 计算,最多不超过 6 ml)无需抽出。放置导管期间注意预防感染,术后 48 h 内需复查血常规及 C 反应蛋白;若提示存在感染,需使用抗生素。对拔管 4 周未达到治愈标准者,给予平阳霉素局部注射治疗,4 周后再评估是否继续注射。

1.3 疗效评估

术后观察患儿一般情况,了解有无发热、局部肿胀、疼痛、继发感染及瘤内出血等,注意药物过敏、肺纤维化等严重不良反应。疗效判断标准^[3]:①治愈,指临床症状消除,瘤体基本消失,影像学检查未见瘤体或仅有少量残余硬化病灶,随访最少 6 个月无复发;②有效,指瘤体缩小 50% 以上,影像学检查仍有少量囊性病灶残余,临床症状减轻,但需进一步治疗;③无效,指影像学检查见病灶无明显缩小,临床症状无减轻或加重。

2 结果

本组 26 例淋巴管畸形患儿均成功置入 5~7 F 猪尾引流导管,每例置管 1 次;24 例患儿置入引流导管 1 条,另 2 例分别置入 2 条、3 条;大囊型病灶均置入 1 条。置管后共行平阳霉素溶液引流冲洗硬化治疗 105 次,平均每例 4 次。6 例并发呼吸困难患儿置引流导管后 3~26 h 均顺利拔除气管插管,无紧急或预防性气管切开。大囊型病灶引流淋巴液总量为 64~392 ml,平均 (190.8 ± 105.9) ml,引流时间 4~7 d,平均 5.5 d;混合型病灶引流淋巴液总量为 28~117 ml,平均 (52.4 ± 25.9) ml,引流时间 3~5 d,平均 3.9 d。平均引流量-时间趋势见图 1。

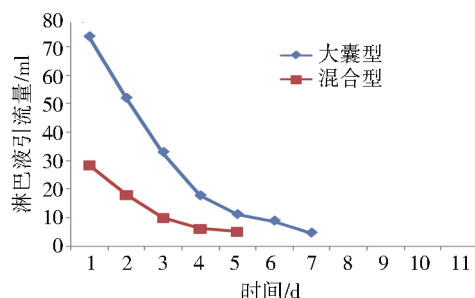


图 1 淋巴液平均引流量-时间趋势图

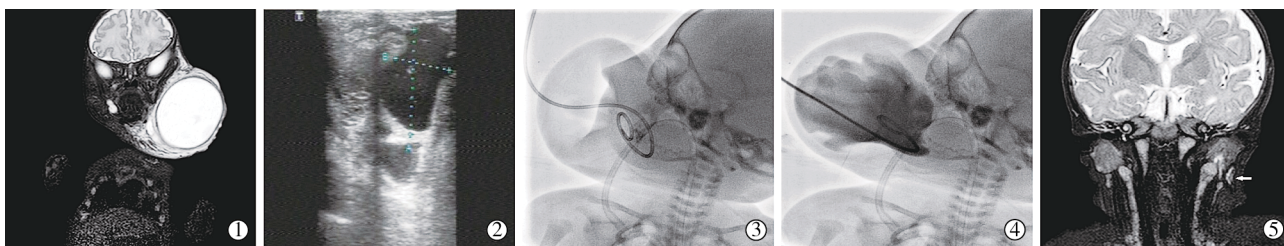
大囊型 12 例均 1 次置管硬化治疗后达治愈标准,拔管后无需平阳霉素局部注射,治愈率为 100%;混合型 14 例中 8 例 1 次置管硬化治疗后达治愈标准,无需平阳霉素局部注射,2 例再注射治疗 1 次,2 例再注射治疗 2 次后达治愈标准,2 例再注射治疗 2 次后达好转标准,治愈率为 85.7%。术后随访 6~36 个月,24 例临床症状消除,影像学检查未见瘤体或仅有少量残余硬化病灶,无复发;2 例瘤体缩小 50% 以上,影像学检查仍有少量囊性病灶残余,建议继续随访。本组总治愈率为 92.3%,有效率达 100%(图 2、3)。

术后主要不良反应:3 例发生急性囊腔内出血,经持续引流冲洗硬化治疗和静脉使用止血药物后出血停止;10 例发生一过性低热,6 例局部肿胀,



①术前 MRI 示左侧臀部、会阴区、大腿后侧及内外侧皮下脂肪层、肌肉及肌间隙见团片状、斑片状、条片状异常信号,T2WI 压脂像为高信号;②超声引导下 18 G 套管穿刺针经皮穿刺病灶,X 线透视下穿刺针进入病灶;③分别置入 7 F、5 F 猪尾引流导管 2 条、1 条;④注入对比剂并在病灶内弥散良好;⑤术后复查 MRI 示仅有少量残余硬化病灶

图 2 左臀部淋巴管畸形经猪尾引流导管硬化治疗前后影像



①术前 MRI 示左侧颈部、颌面部及颞部软组织内大小不等多发囊状异常信号区(约 7.6 cm×9.2 cm×7.5 cm),部分囊壁较厚,境界欠清,T2WI 压脂像为高信号,气管受压;②超声检查示左颈部多方囊性包块,囊内未见明显血流信号;③超声引导下经皮置入 5 F 猪尾引流导管 1 条;④注入对比剂并在病灶内弥散良好;⑤术后复查 MRI 示左侧颈部、颌面部及颞部肿物基本消失,左侧腮腺下小片状异常信号残留(白箭头)

图 3 左颈部淋巴管畸形经猪尾引流导管硬化治疗前后影像

7 例偶有轻度疼痛,均经对症治疗后缓解。无继发感染、药物过敏、肺纤维化等严重不良反应。治疗期间未发生引流导管脱落。

3 讨论

淋巴管畸形由先天性淋巴管发育畸形,或某些原因使发病部位淋巴液排出障碍,引起淋巴液滞留,造成淋巴管异常扩张、增生所致^[4-5]。Descamps 等^[6]研究发现 62% 大囊型淋巴管畸形患儿伴有染色体异常,提示该病发生与染色体数目或亚型异常有关。淋巴管畸形最常见于婴幼儿,多为单发性,多发性少见;出生时发病约占 50%,80%~90% 在 2 岁内发病,无性别差异;好发于淋巴组织集中区域,颌面及头颈部约占 75%,腋下约占 20%,其次为纵隔及四肢,内脏较少累及。淋巴管畸形多无临床症状,部分患儿于体检时发现,伴发创伤、出血或感染可迅速增大并引起症状;病变位于头颈部者可引起呼吸道压迫、吞咽或语言障碍。

淋巴管畸形属良性病变,但很少能自然消退,多需治疗^[7]。病灶常与重要结构相邻,具有浸润性,尤其是位于颌面及头颈部病变^[8],容易引起严重并发症和治疗后高复发率,临床治疗难度大。外科手术是既往治疗淋巴管畸形的主要方式,但由于畸形瘤壁菲薄,术中易撕破^[9],且病变具有浸润性,难以完整切除,手术治疗难度高,手术并发症发生率可达 12%~33%,复发率达 15%~53%^[10]。

近年注入硬化剂治疗淋巴管畸形取得了良好效果,其适应证广泛,具有微创、安全性高、恢复快等特点。硬化治疗主要是通过影像引导定位,经皮穿刺病灶并将囊腔内淋巴液尽可能抽出,然后注射硬化剂破坏囊腔内皮细胞,使其不能分泌淋巴液而使囊腔缩小,促进病灶局部成纤维细胞和胶原纤维增殖,使之发生机化并逐渐缩小。硬化剂种类较多,目前主要有平阳霉素、OK-432、强力霉素、无水乙醇、脲素等。文献报道中多应用平阳霉素及 OK-432,本组以平阳霉素为硬化剂。平阳霉素是平阳链球菌中提取的抗肿瘤药物,作用机制是干扰淋巴管内皮细胞 DNA 合成,使之产生炎症反应,破坏囊腔内皮细胞,引起组织纤维化。

硬化治疗对不同类型淋巴管畸形的疗效差别较大,多个文献报道提示大囊型病灶疗效优于微囊型及混合型,与发生部位则无关^[11-13]。谭小云等^[14]研究表明,介入硬化术治疗新生儿颈部大囊型淋巴管畸形疗程短、创伤小,分次治疗后疗效确切。各类型

淋巴管畸形治疗最重要的操作技巧,是抽出囊腔内所有淋巴液及保持囊腔内硬化剂高浓度。常规硬化治疗穿刺抽液无法彻底抽尽囊腔内淋巴液,加之患儿多年龄较小,硬化剂用量受限、硬化剂被残余淋巴液稀释后浓度下降及残留囊腔内皮细胞继续分泌淋巴液,故需反复多次治疗。引流导管持续引流淋巴液可最大化使得囊腔内淋巴液引流干净,为囊腔内硬化剂浓度达到最大化提供条件,尤以大囊型病灶最为明显;再注入平阳霉素溶液作保留冲洗硬化并变换体位,使溶液充满整个囊腔,明显提高了疗效。每日将平阳霉素溶液注入囊腔并保留冲洗硬化,完成后再将溶液尽可能抽出,既能持续保持硬化剂作用,又能避免硬化剂用量过大。本组大囊型患儿经 1 次置管硬化治疗后均达到治愈标准,免除了多次治疗带来的痛苦。6 例头颈部病灶患儿因肿物压迫气道并发呼吸困难,置入引流导管引流淋巴液后气道压迫即解除,并可短时间内拔除气管插管,避免了长期气管插管带来的并发症。大囊型病灶硬化后容易出现急性囊腔内出血,头颈部病灶大量积血可造成气道压迫,而留置引流导管能迅速引流积血,解除压迫。对于微囊型及混合型病变,治疗关键是增加硬化剂与病变囊壁及异常扩张淋巴管的接触。马静等^[12]报道,对微囊型及混合型病变采取多点、多部位高张力注射硬化剂技术,有利于硬化剂扩散进入异常扩张的淋巴管,提高治愈率。猪尾引流导管具有多个侧孔,可增加硬化剂与病变组织接触面积,有利于硬化剂跨越病灶内多个分隔,使原来不相通的小囊腔互通,冲洗时产生的高张力使之扩散至更多囊腔,深入渗透囊腔,提高疗效;沿混合型病灶长轴方向置入导管,可进一步提高疗效。本组 8 例混合型病变患儿经 1 次置管硬化治疗后达治愈标准,其余需结合平阳霉素局部注射提高疗效;混合型病变治愈率虽低于大囊型病变,却为混合型病变提供了新治疗方式,日后有待进一步提高疗效。从图 1 可见,随着引流导管置入时间推移,淋巴液引流量逐渐减少,大囊型病变引流量在平均 5.5 d 降至平均 3~5 ml,混合型病变在平均 3.9 d 降至同样水平;此后引流量减少并不明显,继续留置导管可增加感染风险。我们认为,大囊型病变的引流时间不宜超过 7 d,混合型病变不宜超过 5 d;对部位较深而广的病变,如腹腔内淋巴管畸形,置管硬化治疗同样也能取得显著疗效。本组 5 例腹腔淋巴管畸形患儿均达到治愈标准。

综上所述,猪尾引流导管应用于硬化治疗大囊型及混合型淋巴管畸形,具有创伤小、治疗周期短、复发率低及安全有效的特点,尤其是对大囊型病变,可减少治疗次数,效果显著,值得临床推广应用。

[参 考 文 献]

- [1] Waner M, Suen JY. Management of congenital vascular lesions of the head and neck[J]. *Oncology (Williston Park)*, 1995, 9: 989-994.
- [2] Giguere CM, Bauman NM, Smith RJ. New treatment options for lymphangioma in infants and children[J]. *Ann Otol Rhinol Laryngol*, 2002, 111: 1066-1075.
- [3] Sanlialp I, Karnak I, Tanyel FC, et al. Sclerotherapy for lymphangioma in children[J]. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2003, 67: 795-800.
- [4] 刘文英, 李福玉, 钟 麟, 等. 儿童大网膜囊性淋巴管瘤的诊治[J]. *中华妇幼临床医学杂志·电子版*, 2007, 3: 252-254.
- [5] 刘 敏, 肖宝来, 史玉爽. 彩色多普勒超声诊断小儿巨大囊性淋巴管瘤一例[J]. *中华医学超声杂志·电子版*, 2010, 7: 691.
- [6] Descamps P, Jourdain O, Paillet C, et al. Etiology, prognosis and management of nuchal cystic hygroma: 25 new case and literature review[J]. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*, 1997, 71: 3-10.
- [7] 张金哲. 现代小儿肿瘤外科学[M]. 北京: 科学出版社, 2003: 177.
- [8] Hartl DM, Roger G, Denoyelle F, et al. Extensive lymphangioma presenting with upper airway obstruction[J]. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*, 2000, 126: 1378-1382.
- [9] Perkins JA, Manning SC, Tempero RM, et al. Lymphatic malformations: Review of current treatment[J]. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2010, 142: 795-803.
- [10] Luzzatto C, Midrio P, Tchaprassian Z, et al. Sclerosing treatment of lymphangiomas with OK-432[J]. *Arch Dis Child*, 2000, 82: 316-318.
- [11] Yura J, Hashimoto T, Tsuruga N, et al. Bleomycin treatment for cystic hygroma in children[J]. *Arch Jpn Chir*, 1977, 46: 607-614.
- [12] 马 静, 高映勤, 林 昱, 等. 婴幼儿颈面部巨大淋巴管畸形的硬化治疗[J]. *中华实用儿科临床杂志*, 2015, 30: 840-843.
- [13] 马 静, 毛志勇, 娄 凡, 等. 婴幼儿颈面部淋巴管畸形治疗方法的探讨[J]. *中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2014, 49: 687-689.
- [14] 谭小云, 张 靖, 周少毅, 等. 新生儿颈部大囊型淋巴管畸形的介入硬化治疗[J]. *中华小儿外科杂志*, 2013, 34: 5-8.

(收稿日期:2015-08-17)

(本文编辑:边 佶)