

·血管介入 Vascular intervention·

经皮导管介入治疗肺动静脉瘘疗效及安全性评价

宋秋韵, 伍广伟, 许能文, 师 洵

【摘要】 目的 评估经皮导管介入治疗肺动静脉瘘(PAVF)的临床效果及安全性。**方法** 回顾性分析 7 例 PAVF 患者治疗方法,均行经皮导管介入治疗。根据术前右心导管及肺动脉造影结果选用弹簧圈栓塞或封堵器封堵治疗。**结果** 7 例患者手术均获成功。其中 1 例植入弹簧圈 3 枚,1 例植入 6 枚;3 例各用 PDA 封堵器 1 枚,2 例分别用 VSD 封堵器 1 枚;引入血管中位直径 6 mm(3.9~6.3 mm)。术后 48 h 患者动脉血氧分压(PaO₂)、动脉血氧饱和度(SaO₂)均显著高于术前($P<0.05$)。随访 24~48 个月,6 例残余分流消失,1 例有少量残余分流;NYHA 分级均减轻,无手术相关并发症发生。**结论** 经皮导管介入治疗 PAVF 安全有效。

【关键词】 肺动静脉瘘;经皮导管介入治疗;肺动脉造影

中图分类号:R743 文献标志码:A 文章编号:1008-794X(2018)-07-0623-04

Percutaneous transcatheter interventional therapy for pulmonary arteriovenous fistula: evaluation of its curative effect and safety SONG Qiuyun, WU Guangwei, XU Nengwen, SHI Xun. Department of Cardiology, People's Hospital, Nanning, Guangxi Zhuang Autonomous Region 530021, China

Corresponding author: WU Guangwei, E-mail: wgw311@163.com

【Abstract】 Objective To evaluate the clinical efficacy and safety of percutaneous transcatheter interventional therapy in treating pulmonary arteriovenous fistula (PAVF). **Methods** The clinical data of 7 patients with PAVF, who received percutaneous transcatheter interventional therapy, were retrospectively analyzed. According to the findings of preoperative right cardiac catheterization and pulmonary arteriography, embolization therapy with spring coils or occlusion therapy with occluder (VSD occluder or domestic PDA occluder) was carried out. **Results** The operation was successfully accomplished in all 7 patients. A total of 9 spring coils were implanted in the 2 among the 7 patients, one PDA occluder was used in each one of 3 patients, and one VSD occluder was employed in each one of 2 patients. The median diameter of the feeding artery was 6 mm (3.9–6.3 mm). Both the arterial partial pressure of oxygen (PaO₂) and the arterial oxygen saturation (SaO₂) determined at 48 hours after embolization were significantly higher than preoperative ones ($P<0.05$). The patients were followed up for 24–48 months, disappearance of residual shunt was observed in 6 patients and a small amount of residual shunt was detected in one patient. NYHA grading was improved in all patients. No procedure-related complications occurred. **Conclusion** For the treatment of PAVF, percutaneous transcatheter interventional therapy is safe and effective. (J Intervent Radiol, 2018, 27: 623-626)

【Key words】 pulmonary arteriovenous fistula; percutaneous transcatheter interventional therapy; pulmonary angiography

DOI:10.3969/j.issn.1008-794X.2018.07.005

基金项目:广西壮族自治区科技厅攻关项目(桂科攻 14124004-1-6)

作者单位:530021 南宁 广西壮族自治区人民医院心血管内科

通信作者:伍广伟 E-mail: wgw311@163.com

肺动静脉瘘(pulmonary arteriovenous fistula, PAVF)为先天性疾病,发病率约为 0.38‰^[1],遗传性出血性毛细血管扩张症(hereditary hemorrhagic telangiectasia, HHT)患者 PAVF 发病率较高。有证据表明, HHT 与 ENG、ACVRL1 和 Smad4 基因突变相关^[2]。获得性 PAVF 较先天性少见,通常与肝硬化、血吸虫病、结核病、放线菌病和外伤有关^[3]。PAVF 患者发生脑卒中、脑脓肿、短暂性脑缺血发作等并发症可能性极高^[4-5],如 PAVF 反常栓塞易造成神经系统并发症。Taylor 等^[6]1978 年首次报道 PAVF 介入栓塞治疗。随着介入技术及封堵材料不断发展,经皮导管介入治疗减少了传统手术治疗相关风险^[2,7],已成为 PAVF 主流治疗方法。本研究回顾性分析经皮导管封堵/栓塞治疗 PAVF 患者的效果及安全性。

1 材料与方法

1.1 一般资料

收集 2009 年 5 月至 2015 年 5 月广西壮族自治区人民医院收治的 7 例经肺动脉造影和/或 64 层螺旋 CT 肺血管造影(CT pulmonary angiography, CTPA)证实 PAVF 患者临床资料。其中男 4 例,女 3 例,中位年龄 32(29~63)岁;美国纽约心脏病协会(NYHA)心功能Ⅲ级 3 例,Ⅱ级 4 例;1 例室间隔缺损(VSD)患者已接受 VSD 封堵治疗;1 例有鼻出血复发和咯血病史,2 例有活动后胸闷、呼吸困难,4 例无症状;查体见杵状指 2 例,手部毛细血管扩张

灶 1 例,心前区可闻及收缩期杂音 3 例;伴有 HHT 3 例,血红蛋白升高 1 例。

1.2 介入治疗方法

所有患者均签署手术知情同意书。局部麻醉下穿刺股静脉并全身肝素化,先行右心导管术与肺动脉造影术(或通过术前 CTPA)了解瘘管形态、大小及走行,确定拟封堵肺动脉引入血管并准确测量管径;对引入血管直径>5 mm 患者采用封堵器封堵,送入 0.035 英寸加硬导丝至瘘道远端,沿导丝送入 6~12 F 输送鞘管,经鞘管送入动脉导管未闭(PDA)封堵器/VSD 封堵器(深圳先健科技公司)进行封堵,复查造影显示封堵完全,囊腔完全不显影,封堵器大小、位置适宜,未影响正常肺动脉分支血流;对引入血管直径为 3~5 mm(封堵器鞘管难以到达病变部位)患者采用弹簧圈栓塞,Pilot 50 指引导丝送至瘘道远端,送入 ev3 微导管,撤出导丝,植入弹簧圈(美国 Micro Therapeutic 公司),复查造影显示残余分流明显减少,未影响正常肺动脉分支血流。

1.3 统计学方法

采用 SPSS 17.0 软件进行统计学分析。连续变量组间差异用配对 *t* 检验,非参数变量用 Wilcoxon 秩和检验。*P*<0.05 为差异有统计学意义。

2 结果

7 例经皮导管封堵/栓塞治疗 PAVF 患者临床特征见表 1。

表 1 7 例 PAVF 患者特征及经皮导管封堵/栓塞手术时间、透视时间

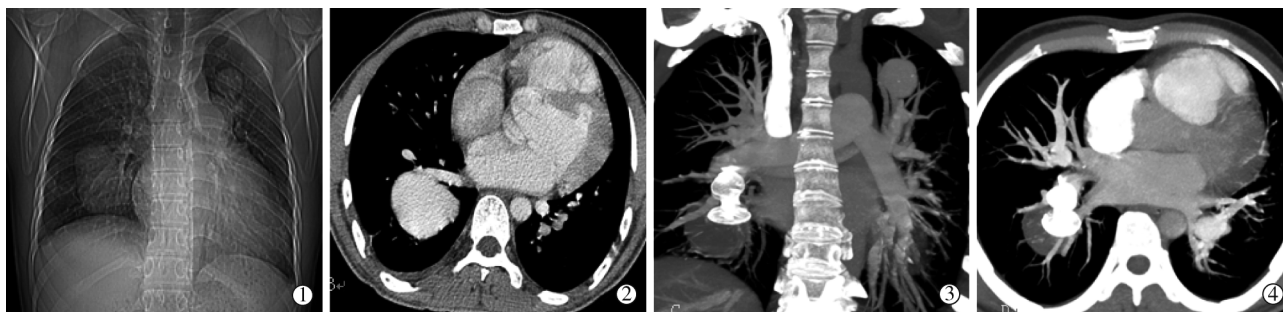
患者	年龄/岁 (性别)	基础心脏疾病	伴 HHT	部位	类型	手术时间/min	FA/mm	栓塞/封堵器械(枚)	并发症	出院时 残余分流	随访时 残余分流	透视时间/min
1	36(男)	VSD	有	RL、LU	单纯	120	63	VSD 封堵器(1)	—	少量	—	45
2	49(男)	—	有	LL	复杂	98	7	PDA 封堵器(1)	—	少量	少量	31
3	44(女)	—	无	RM	单纯	45	3.9	弹簧圈(6)	—	—	—	26
4	22(男)	—	无	LU	单纯	53	5	PDA 封堵器(1)	—	—	—	18
5	28(女)	—	有	RM	单纯	96	35	VSD 封堵器(1)	—	少量	—	32
6	32(女)	—	无	RL	复杂	65	4	弹簧圈(3)	—	—	—	22
7	19(男)	—	无	LM	单纯	78	6	PDA 封堵器(1)	—	—	—	26

注: VSD: 室间隔缺损; HHT: 遗传性出血性毛细血管扩张症; RL: 肺右下叶; LU: 左肺上叶; LL: 左肺下叶; RM: 右肺中叶; LM: 左肺中叶; FA: 引入动脉直径; PDA: 动脉导管未闭

所有患者 PAVF 均成功封堵/栓塞(图 1),其中 1 例植入弹簧圈 3 枚,1 例植入 6 枚;3 例各用 PDA 封堵器 1 枚,2 例分别用 VSD 封堵器 1 枚;引入血管中位直径 6 mm(3.9~63 mm);手术时间为 45~120 min,平均(79.3±27.0) min;透视时间为 18~45 min,平均(28.6±8.8) min,见表 1。术后 48 h 动脉血氧分压(PaO₂)、动脉血氧饱和度(SaO₂)均显著高于术前(*P*<0.05),动脉血二氧化碳分压(PaCO₂)

虽较术前升高,但差异无统计学意义(*P*>0.05),见表 2。术后 3 例肺动脉造影显示少量残留分流。术后所有患者紫绀和肺血管杂音均消失,无器械、手术相关并发症发生(表 1)。

所有患者随访 24~48 个月。6 例紫绀、咯血、鼻出血症状缓解,不吸氧状态下 SaO₂>90%,1 例仍有紫绀和胸痛。近期随访中经胸超声心动图显示 1 例(患者 2)有少量残余分流;所有患者 NYHA 分级较



①②术前肺部 CTPA 示左肺上叶和右肺下叶 PAVF;③④VSD 封堵器封堵 PAVF 后 48 个月复查 CTPA 未见复发

图 1 患者 1 PAVF 治疗前后影像

表 2 7 例 PAVF 患者封堵/栓塞手术前后动脉血气分析及 NYHA 分级比较

时间	PaO ₂ /mmHg	PaCO ₂ /mmHg	SaO ₂ %	Hb/(g/L)	NYHA 分级 [*]			
					I	II	III	IV
术前	80.4±9.5	36.9±2.4	94.5±2.1	117.6±35.2	0	4	3	0
术后	92.6±2.8 [*]	38.0±3.6	97.4±1.1 [*]	123.4±13.5	5	2	0	0

注: PaO₂: 动脉血氧分压; PaCO₂: 动脉血二氧化碳分压; SaO₂: 动脉血氧饱和度; Hb: 血红蛋白; * 与术前相比, $P<0.05$; ^{*}Wilcoxon 秩和检验术后 NYHA 分级明显下降 ($Z=-2.53$, $P<0.05$); 1 mmHg=0.133 kPa

术前减轻,未发生器械相关性栓塞、感染性心内膜炎等;复查 CTPA 未发现复发或再通;原有心脏杂音患者杂音消失, SaO₂ 维持在正常水平或接近正常水平。

3 讨论

肺毛细血管襻末梢缺陷使血管扩张成血管囊,肺动静脉之间直接形成交通,导致 PAVF。PAVF 可能破裂并导致危及生命的咯血或血胸,或其引起的右向左分流可能导致反常栓塞^[8]。临床症状轻重取决于其病理变化及右向左分流量,15%~50%患者缺乏明显临床表现。右向左分流量大于体循环总量 20%以上时,患者可出现紫绀、杵状指、呼吸困难及反常栓塞等临床表现,最显著表现为无症状低氧血症^[9]。本组 3 例患者有相关临床表现(鼻出血、咯血、胸痛和呼吸困难),其余患者无明显症状;1 例复杂 PAVF 患者有严重低氧血症;仅引入血管直径 ≥ 3 mm 患者栓塞术后症状与氧合不足有较大改善。既往文献报道欧美国家 70%~95% PAVF 与 HHT 有关^[2],白种人群 HHT 伴发 PAVF 概率远高于亚洲人群,本组 3 例患者(3/7)临床诊断为 HHT^[3]。本研究发现术后患者 NYHA 分级减轻,可能与术后右向左分流明显减少,氧合不足改善有关。

根据不同临床特征,PAVF 诊断基于右向左分流与影像学表现。超声心动图(右心声学造影)结合 CTPA 是检测 PAVF 敏感方法^[2,4,10-11]。肺动脉造影为 PAVF 诊断“金标准”,根据形态特征分为:①单纯型——病灶为单发或多发血管瘤样扩张,分别有 1

条供血动脉和引流静脉;②复杂型——病灶为多发血管瘤样扩张,有多条供血动脉和引流静脉;③弥散型——病灶呈弥漫多发,相应区域无毛细血管实质充盈期或病变部位肺静脉提前显影^[12]。介入治疗前诊断性肺动脉造影有助于明确瘘管形态、大小及走行,确定拟栓塞/封堵肺动脉引入血管,并准确测量管径,制定治疗方案,评估方案收益及风险^[3]。

目前经皮导管介入栓塞/封堵术已逐渐取代外科手术,成为 PAVF 一线治疗方案。既往传统栓塞材料主要为可解脱球囊及弹簧圈,但可能引起球囊萎陷导致瘘管再通、弹簧圈移位脱落引起异位栓塞等并发症^[13];Amplatzer 封堵器因单个可封堵引入血管直径较大 PAVF、易于瘘管颈部封堵及可闭塞较短血管之优势逐渐广泛应用^[14]。经皮导管介入栓塞/封堵术成功率高,相关研究显示成功率 $>90\%$ 。

经皮导管介入治疗通常推荐用于引入血管直径 ≥ 3 mm PAVF 患者^[15]。2009 年 HHT 诊治指南认为,经皮导管介入治疗亦可用于引入血管直径 <2 mm PAVF^[2]。本组患者引入血管直径为 3.9~6.3 mm,符合经皮导管介入治疗适应证。栓塞材料选择目前尚无定论。文献报道对引入血管直径 <7 mm 患者,可采用弹簧圈栓塞;对引入血管直径粗大 (>7 mm) 患者,由于弹簧圈枚数增多致使脱落、移位等并发症风险增加,可采用 Amplatzer 封堵器^[13,16-17]。Amplatzer 封堵器型号齐全,适用于不同引入直径 PAVF。本研究为避免弹簧圈脱落、移位风险,尽量尝试应用封堵器(3 例选择 PDA 封堵器,2 例选择 VSD 封堵器),均得到满意临床效果,安全可行。

PAVF 经皮导管介入治疗常见并发症包括复发/再通、栓塞/封堵装置脱落、脑卒中、一过性胸膜反应及咯血等^[18]。本组患者未发生手术相关并发症。虽然大多数 PAVF 治疗获得成功,但远期随访中仍有一些患者首次栓塞/封堵后发生再通^[19]。弹簧圈栓塞后 PAVF 再通较为多见,再通率为 8%~49%^[7],再次栓塞治疗后再通率明显降低^[20]。有研究显示,Amplatzer 封堵器结合弹簧圈栓塞可有效防止再通^[21]。再通危险因素包括应用单弹簧圈应用、引入血管内径过大、弹簧圈过大及植入弹簧圈过于靠近引入血管(<1 cm)^[22]。本组除患者 2 随访时仍有少量残余分流外,其余患者无残余分流,亦未发生再通。

总之,经皮导管介入治疗 PAVF 安全有效。根据不同 PAVF 类型选择合适栓塞/封堵材料是取得较好疗效的关键。

[参 考 文 献]

- [1] Kayama M, Nawa T, Chonan T, et al. Prevalence of pulmonary arteriovenous malformations as estimated by low-dose thoracic CT screening[J]. Intern Med, 2012, 51: 1677-1681.
- [2] Faughnan ME, Palda VA, Garcia-Tsao G, et al. International guidelines for the diagnosis and management of hereditary haemorrhagic telangiectasia[J]. J Med Genet, 2011, 48: 73-87.
- [3] Shovlin CL. Pulmonary arteriovenous malformations[J]. Am J Respir Crit Care Med, 2014, 190: 1217-1228.
- [4] Shovlin CL, Jackson JE, Bamford KB, et al. Primary determinants of ischaemic stroke/brain abscess risks are independent of severity of pulmonary arteriovenous malformations in hereditary haemorrhagic telangiectasia[J]. Thorax, 2008, 63: 259-266.
- [5] Kjeldsen AD, Topping PM, Nissen H, et al. Cerebral abscesses among Danish patients with hereditary haemorrhagic telangiectasia[J]. Acta Neurol Scand, 2014, 129: 192-197.
- [6] Taylor BG, Cockerill EM, Manfredi F, et al. Therapeutic embolization of the pulmonary artery in pulmonary arteriovenous fistula[J]. Am J Med, 1978, 64: 360-365.
- [7] Hayashi S, Baba Y, Senokuchi T, et al. Efficacy of venous sac embolization for pulmonary arteriovenous malformations: comparison with feeding artery embolization[J]. J Vasc Interv Radiol, 2012, 23: 1566-1577.
- [8] Trerotola SO, Pyeritz RE. PAVF embolization: an update[J]. AJR Am J Roentgenol, 2010, 195: 837-845.
- [9] Santhirapala V, Williams LC, Tighe HC, et al. Arterial oxygen content is precisely maintained by graded erythrocytotic responses in settings of high/normal serum iron levels, and predicts exercise capacity: an observational study of hypoxaemic patients with pulmonary arteriovenous malformations[J]. PLoS One, 2014, 9: e90777.
- [10] Faughnan ME, Palda VA, Garcia-Tsao G, et al. International guidelines for the diagnosis and management of hereditary haemorrhagic telangiectasia[J]. J Med Genet, 2011, 48: 73-87.
- [11] 毛一朴, 马隆佰. 64 层螺旋 CT 血管成像不同重建方法在肺动静脉畸形诊断中的应用[J]. 实用放射学杂志, 2012, 28: 1028-1031.
- [12] 刘瀚曼, 陈莉娜. 先天性肺动静脉瘘[J]. 中华实用儿科杂志, 2016, 31: 1216-1218.
- [13] 杨 剑, 黄连军, 蒋世良, 等. Amplatzer 封堵器栓塞肺血管瘘道畸形[J]. 介入放射学杂志, 2004, 13: 236-238.
- [14] Kucukay F, Ozdemir M, Senol E, et al. Large pulmonary arteriovenous malformations: long-term results of embolization with AMPLATZER vascular plugs[J]. J Vasc Interv Radiol, 2014, 25: 1327-1332.
- [15] Gupta S, Faughnan ME, Bayoumi AM. Embolization for pulmonary arteriovenous malformation in hereditary hemorrhagic telangiectasia: a decision analysis[J]. Chest, 2009, 136: 849-858.
- [16] Abdel Aal AK, Ibrahim RM, Moustafa AS, et al. Persistence of pulmonary arteriovenous malformations after successful embolotherapy with Amplatzer vascular plug: long-term results[J]. Diagn Interv Radiol, 2016, 22: 358-364.
- [17] 徐 亮, 徐仲英, 蒋世良. 应用动脉导管未闭及房间隔缺损封堵器治疗肺动静脉瘘[J]. 介入放射学杂志, 2009, 18: 14-18.
- [18] 李 磊, 韩新巍, 李 臻, 等. 肺动静脉畸形介入治疗现状与研究进展[J]. 中国医学影像技术, 2015, 31: 1438-1441.
- [19] Woodward CS, Pyeritz RE, Chittams JL, et al. Treated pulmonary arteriovenous malformations: patterns of persistence and associated retreatment success[J]. Radiology, 2013, 269: 919-926.
- [20] Shimohira M, Kawai T, Hashizume T, et al. Reperfusion rates of pulmonary arteriovenous malformations after coil embolization: evaluation with time-resolved MR angiography or pulmonary angiography[J]. J Vasc Interv Radiol, 2015, 26: 856-864.
- [21] Trerotola SO, Pyeritz RE. Does use of coils in addition to amplatzer vascular plugs prevent recanalization? [J]. AJR Am J Roentgenol, 2010, 195: 766-771.
- [22] Milic A, Chan RP, Cohen JH, et al. Reperfusion of pulmonary arteriovenous malformations after embolotherapy[J]. J Vasc Interv Radiol, 2005, 16: 1675-1683.

(收稿日期:2017-10-08)

(本文编辑:边 佑)