

## •血管介入 Vascular intervention•

## 挽救性介入治疗下颌骨动静脉畸形伴出血

李臻, 詹鹏超, 李鑫, 纪坤, 周朋利, 石洋, 叶书文, 谢炳灿, 韩新巍

**【摘要】目的** 评价介入手术治疗下颌骨动静脉畸形伴出血的效果。**方法** 回顾性分析 2012 年 1 月至 2018 年 1 月在郑州大学第一附属医院接受介入治疗的 7 例下颌骨动静脉畸形伴出血患者临床资料。其中男 3 例,女 4 例;年龄 8~13 岁,平均(10.6±1.7)岁;均以不同程度出血为症状就诊。3 例经动静脉途径栓塞治疗,4 例单纯动脉途径栓塞治疗,栓塞材料为聚乙烯醇(PVA)颗粒和弹簧圈。术后随访 9~18 个月。**结果** 介入治疗后 7 例出血症状均得到有效控制。无异位栓塞等严重并发症发生。随访期间均未复发出血,仅 1 例出现口腔感染,对症治疗后得到有效控制。**结论** 急症介入治疗下颌骨动静脉畸形出血疗效确切,技术安全可行,可达到迅速止血和挽救生命的目的。

**【关键词】** 动静脉畸形;下颌骨;介入放射学;血管内栓塞

中图分类号:R543.2 文献标志码:A 文章编号:1008-794X(2019)-012-1144-04

**Salvage interventional treatment of arteriovenous malformation of mandible with hemorrhage** LI Zhen, ZHAN Pengchao, LI Xin, JI Kun, ZHOU Pengli, SHI Yang, YE Shuwen, XIE Bingcan, HAN Xinwei. Department of Interventional Radiology, First Affiliated Hospital of Zhengzhou University, Zhengzhou, Henan Province 450052, China

Corresponding author: LI Zhen, E-mail: lzjrf620@163.com

**【Abstract】 Objective** To evaluate the effect of salvage interventional therapy for arteriovenous malformation of mandible(MAVM) with hemorrhage. **Methods** The clinical data of 7 pediatric patients with MAVM treated by interventional therapy in the First Affiliated Hospital of Zhengzhou University from January 2012 to January 2018 were retrospectively analyzed. There were 3 males and 4 females aged from 8 to 13 years. All patients had different degrees of bleeding. 4 cases were treated by arterial embolization, 3 cases by arterial and venous embolization. The embolic materials concluded coils and PVA particles. The follow-up time was 9-18 months. **Results** After interventional treatment, the bleeding of 7 children were effectively controlled, and no recurrence occurred during the follow-up period. One patient with oral infection recovered after symptomatic treatment. There were no serious complications. **Conclusion** Emergency interventional treatment of MAVM with hemorrhage has definite effect, which is safe, feasible and can achieve the purpose of rapid hemostasis to save life. (J Intervent Radiol, 2019, 28: 1144-1147)

**【Key words】** arteriovenous malformation; mandible; interventional radiology; endovascular embolization

下颌骨动静脉畸形是相对罕见的先天性疾病,主要表现为反复发作的口腔出血,严重者可危及生命,临床诊断和治疗相当棘手<sup>[1]</sup>。由于发病率低,目前国内外文献报道较少,且以个案报道和小样本病例分析为主,缺乏大宗系统性临床试验研究。介入

治疗出血性疾病有显著优势,疗效立竿见影,但在下颌骨动静脉畸形伴出血治疗中的临床应用报道较少。本研究回顾性分析 7 例经急症介入治疗的下颌骨动静脉畸形伴出血患者临床资料,出血均得到有效控制,现报道如下。

DOI:10.3969/j.issn.1008-794X.2019.012.006

基金项目:河南省高等学校重点科研项目(17A320011)

作者单位:450052 郑州大学第一附属医院放射介入科

通信作者:李臻 E-mail: lzjrf620@163.com

## 1 材料与方法

### 1.1 一般资料

回顾性分析 2012 年 1 月至 2018 年 1 月在郑

州大学第一附属医院就诊并接受介入治疗的 7 例下颌骨动静脉畸形伴出血患者临床资料。其中男 3 例,女 4 例;年龄 8~13 岁,平均(10.6±1.7)岁;2 例因拔牙诱发急性大出血,1 例因换牙期牙齿活动诱发急性大出血,1 例颌面部受撞击后诱发急性大出血,3 例为自发性渗血;4 例突发性大出血患者均出现头晕、心率加快、血压急剧下降等休克体征,估计出血量为 850~1 600 mL。出血量估算依据患者体重、休克指数(SI),SI=心率/收缩压,儿童循环血容量(L)约占体重(kg)9%,见表 1<sup>[2-3]</sup>。7 例患者术前均接受止血药物、聚维酮碘纱布填塞压迫出血点、输血及支持治疗等干预。7 例患者均接受急诊介入治疗,术中造影确诊为下颌骨动静脉畸形。患者基本资料见表 2。

表 1 SI 与估计失血量关系

SI	估计失血量/循环血容量
0.7<SI<1.0	<20%
1.0≤SI<1.5	20%~30%
1.5≤SI<2.0	30%~50%

表 2 7 例下颌骨动静脉畸形患者临床资料

患者 性别	年龄 /岁	体重 /kg	症状	诱因	心率/ (次/ min)	收缩压 /mmHg	SI	估计 出血 量/mL
1 男	9	35	自发反复性出血	-	-	-	-	-
2 男	11	49	急性出血	拔牙	106	102	1.0	882
3 男	12	51	急性出血	拔牙	150	93	1.6	1560
4 女	8	24	自发反复性出血	-	-	-	-	-
5 女	11	38	自发反复性出血	-	-	-	-	-
6 女	10	45	急性出血	牙齿 松动	132	108	1.2	972
7 女	13	47	急性出血	外伤	160	124	1.3	1100

1 mmHg=0.133 kPa

## 1.2 设备与材料

Artis Zeego 型 DSA 机(德国 Siemens 公司),5 F 椎动脉导管、5 F KMP 导管(美国 Cook 公司),SP 微导管(日本 Terumo 公司),以及聚乙烯醇(PVA)颗粒(美国 Cook 公司,粒径 150~350 μm/350~560 μm),多规格纤毛弹簧圈(美国 Cook 公司)。

## 1.3 介入手术

患者和家属知情同意后,给予患者全身麻醉、心电监护、留置导尿管等措施。手术方法为超选择血管造影并作畸形血管栓塞:①单纯动脉血管内栓塞——改良 Seldinger 技术穿刺右股动脉,置入 5 F 血管鞘,5 F 椎动脉导管送至双侧颈外动脉作造影,明确病变性质和供血动脉,以适宜规格 PVA 颗粒、弹簧圈进行栓塞。②静脉结合动脉血管内“双介入

法”——动脉造影和栓塞治疗后,确定引流静脉位置,以 18 G 穿刺针经皮经颌骨穿刺至引流静脉,交换引入 5 F KMP 导管,造影明确其直径等参数,以适宜规格弹簧圈进行静脉端栓塞。

## 1.4 疗效判断

根据术后患者出血症状改善及有无并发症,制订疗效评价标准。栓塞成功:术中复查造影显示畸形血管团和引流静脉未再显影,术后心率、血压等基本生命体征恢复正常,7 d 内复查血红蛋白水平上升,随访期间内无复发出血,无肺栓塞、脑梗死等严重并发症发生。栓塞失败:术中复查造影显示畸形血管团和引流静脉仍显影,术后口腔出血症状未改善或止血效果不理想,出现异位栓塞等严重并发症。

## 2 结果

动脉造影早、中期可见丰富紊乱的畸形血管团,即异常动静脉分流通路,动脉末期可见粗大的引流静脉显影。7 例患者均有下牙槽动脉供血,伴有面动脉(4 例)和/或舌动脉(2 例)供血。术后 4 例急性大出血得到有效控制,3 例慢性渗血症状消失。无异位栓塞等严重并发症发生。随访 9~18 个月,所有患者未复发出血,仅 1 例出现口腔感染,对症治疗得到有效控制。治疗方案和随访结果见表 3。1 例患者治疗前后影像见图 1。

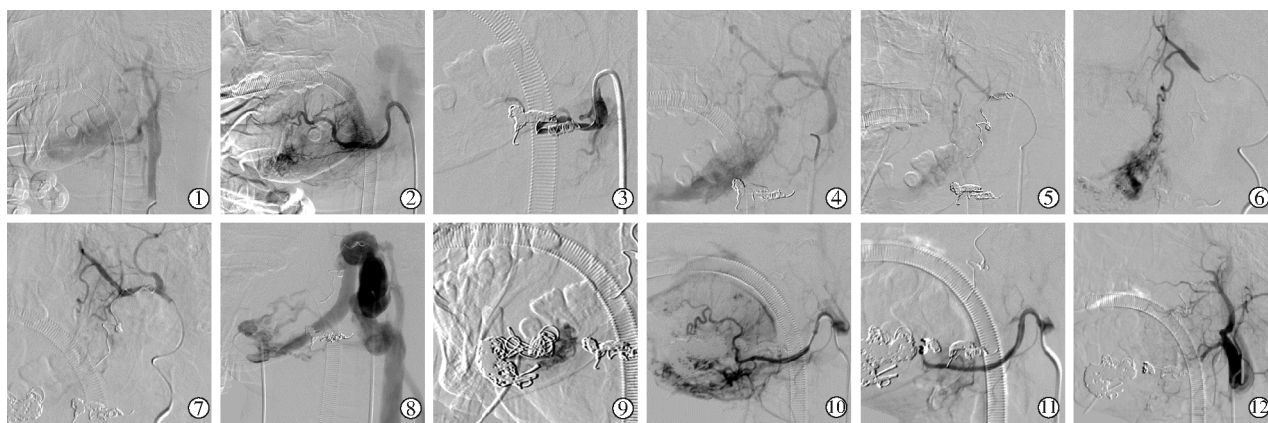
## 3 讨论

下颌骨动静脉畸形是一种罕见的先天性血管发育异常疾病,是胚胎血管发育过程中动静脉系统间存在异常吻合所致,表现为动静脉间无正常毛细血管网,而通过异常通道直接分流<sup>[4]</sup>。患者在出生和婴幼儿期可无任何体征和症状,但随着患儿成长,病变会不断进展,导致骨质破坏、侵犯邻近组织并引起面部肿胀、皮肤变色,局部温度升高,听诊可闻及血管杂音、震颤等一系列体征<sup>[5]</sup>。由于临床上对该病认识不足,早期出现相应体征时易漏诊,患者常因拔牙、外伤等因素诱发急性大出血,危及生命<sup>[6]</sup>。

下颌骨动静脉畸形诊断需要结合临床病史和影像学检查。普通 X 线上主要表现为单房或多房病变,呈“肥皂泡”“蜂窝状”骨改变<sup>[7]</sup>。CT 特征主要为骨质膨隆、骨髓腔间隙增大、骨小梁消失,并可显示颌骨内病变位置、范围、边界和大小等信息,但不能明确诊断该病<sup>[8]</sup>。MRI 有诊断价值,平扫可见不规则蜂窝状流空血管巢和流空血管影,注射对比剂后局部组织无明显强化<sup>[9]</sup>。CTA 和 MRA 则可明确

表 3 介入治疗方案和随访结果

患者	供血动脉	术前治疗	栓塞方式	栓塞剂	并发症	结果	随访/月
1	下牙槽动脉	加压填塞, 输红细胞 2 U	动脉栓塞	PVA(350~560 $\mu\text{m}$ )	无	未复发	9
2	下牙槽动脉、面动脉	加压填塞, 输红细胞 4 U	双介入法栓塞	PVA(150~350/350~560 $\mu\text{m}$ )、弹簧圈	无	未复发	12
3	下牙槽动脉、舌动脉	加压填塞, 输红细胞 8 U、 血浆 400 mL	双介入法栓塞	PVA(150~350/350~560 $\mu\text{m}$ )、弹簧圈	无	未复发	14
4	下牙槽动脉、面动脉	加压填塞	动脉栓塞	PVA(150~350/350~560 $\mu\text{m}$ )	无	未复发	15
5	下牙槽动脉	加压填塞	动脉栓塞	PVA(350~560 $\mu\text{m}$ )	无	未复发	11
6	下牙槽动脉、舌动脉、 面动脉	加压填塞, 输红细胞 4 U、 血浆 400 mL	双介入法栓塞	PVA(150~350/350~560 $\mu\text{m}$ )、弹簧圈	口腔 感染	未复发	18
7	下牙槽动脉、面动脉	加压填塞, 输红细胞 4 U、 血浆 400 mL	动脉栓塞	PVA(150~350/350~560 $\mu\text{m}$ )	无	未复发	14



患者女, 12 岁, 因拔牙时突发急性大出血就诊, 行急诊介入治疗: ①颈总动脉 DSA 造影示畸形血管团、引流静脉; ②③超选至面动脉造影示畸形血管团, PVA、微弹簧圈栓塞后畸形血管团不再显影; ④颈外动脉复查造影示下牙槽动脉和颌内动脉一支向畸形血管团供血; ⑤⑥⑦下牙槽动脉确认后以 PVA 和微弹簧圈栓塞, 复查造影颌内动脉分支仍参与畸形血管团供血, 以 PVA 颗粒栓塞之, 血供阻断; ⑧⑨经皮经颌骨穿刺至引流静脉造影, 引流静脉粗大迂曲, 以弹簧圈栓塞后引流静脉不再显影, 残余少许畸形血管团; ⑩⑪⑫经颈外动脉复查造影, 仍可见畸形血管团显影, 舌动脉参与供血, 超选至舌动脉造影确认后以 PVA 栓塞之, 造影显示无残余病灶, 畸形血管团和引流静脉不再显影

图 1 介入治疗下颌骨动静脉畸形大出血影像

供血动脉, MRA 相较于 CTA、DSA 不具辐射伤害<sup>[10]</sup>。DSA 是诊断该病金标准, 能清晰显示畸形血管和异常动静脉短路交通情况, 亦能更好地了解出血部位和严重程度, 且能同步行介入治疗。有学者根据血管造影表现将该病分为弥散型、单静脉腔型、弥散单静脉腔型、多静脉腔型、弥散多静脉腔型等 5 种类型<sup>[11]</sup>但临床应用价值有待进一步评价。

下颌骨动静脉畸形主要治疗目的是控制急性出血、预防大出血。术前用纱布等压迫填塞止血可暂时减缓出血<sup>[1]</sup>。目前治疗手段以介入治疗和外科手术为主<sup>[12]</sup>。介入治疗是该病首选治疗方案, 对于急性出血, 可明显降低病死率<sup>[10, 13]</sup>。国内外报道下颌骨血管畸形急性出血经介入治疗后, 82.4%~100% 患者症状得到有效控制<sup>[8, 14]</sup>。栓塞治疗关键在于完全闭塞畸形血管床, 常用栓塞材料包括弹簧圈、PVA 颗粒等固体栓塞剂以及乙烯-乙醇共聚物(Onyx)、氰基乙酸盐等液体栓塞剂<sup>[15-16]</sup>。由于该病

高流速血流动力学特点, 弹簧圈、明胶海绵等栓塞剂供血动脉时通常仅起到减缓血流的作用, 随着后期血流再通、侧支血管开放, 复发风险较高。液体栓塞剂可完全闭塞引流静脉和畸形血管床, 治愈率高, 但易引起肺栓塞、脑梗死等并发症<sup>[17]</sup>。单纯引流静脉栓塞相较于动脉栓塞安全性高。Wang 等<sup>[18]</sup>采用弹簧圈和无水乙醇栓塞引流静脉取得良好疗效。单纯外科手术有诱发急性出血可能, 且对急性大出血患者无迅速止血的优势, 虽可达到治愈目的, 但创伤大。目前有许多研究推荐介入栓塞术后 24 h 内行外科手术, 可有效降低出血风险, 提高治愈率, 但可能会影响美观并造成功能性障碍, 尤其是对儿童患者, 父母通常不易接受<sup>[14]</sup>。

本组 7 例患者经介入治疗后出血症状均得到有效控制, 随访期间无复发, 无严重并发症发生, 初步表明介入治疗下颌骨动静脉畸形出血安全有效, 具有微创、可重复等优势。本研究存在一定的局限

性,如病例样本量不大、随访时间短等,仍有待进一步探索和研究。

#### [参 考 文 献]

- [1] Su L, Wang D, Han Y, et al. Salvage treatment of hemorrhagic arteriovenous malformations in jaws[J]. J Craniomaxillofac Surg, 2015, 43: 1082-1087.
- [2] Nathan HL, El Ayadi A, Hezelgrave NL, et al. Shock index: an effective predictor of outcome in postpartum haemorrhage? [J]. BJOG, 2015, 122: 268-275.
- [3] 胥伶杰,徐军. 休克指数在急诊病情判断中的作用[J]. 临床急诊杂志, 2011, 12: 69-71.
- [4] Aldridge E, Cunningham LL Jr, Gal TJ, et al. Intraosseous venous malformation of the mandible: a review on interdisciplinary differences in diagnostic nomenclature for vascular anomalies in bone and report of a case[J]. J Oral Maxillofac Surg, 2012, 70: 331-339.
- [5] Bergeron M, Cortes M, Dolev Y, et al. Extensive bilateral arteriovenous malformations of the mandible successfully controlled by combined endovascular and transcutaneous angio-embolization: case report and review of the literature[J]. Int J Pediatr Otorhino-laryngol, 2013, 77: 130-136.
- [6] Ferres-Amat E, Prats-Armengol J, Maura-Solivellas I, et al. Gingival bleeding of a high-flow mandibular arteriovenous malformation in a child with 8-year follow-up[J]. Case Rep Pediatr, 2015, 2015: 745718.
- [7] Bhuyan SK, Birniwal KG, Kar IB, et al. High flow AV malformation (A-V shunt) of mandible: a rare life threatening entity[J]. J Clin Diagn Res, 2016, 10: ZD16-ZD18.
- [8] 范新东,张志愿,张陈平,等. 颌骨高流速血管畸形的诊断和治疗[J]. 中华口腔医学杂志, 2005, 40: 191-194.
- [9] 范新东. MRI 结合动脉造影检查在头颈部血管畸形中的应用价值[J]. 华西口腔医学杂志, 2000, 18: 404-407.
- [10] Theologie - Lygidakis N, Schoinohoriti O, Tzermpos F, et al. Management of intraosseous vascular malformations of the jaws in children and adolescents: report of 6 cases and literature review [J]. J Oral Maxillofac Res, 2015, 6: e5.
- [11] 柳登高,马绪臣,赵福运,等. 颌骨动静脉畸形的血管造影分型初探及治疗分析[J]. 中华口腔医学杂志, 2005, 40: 195-199.
- [12] Shum JW, Clayman L. Resection and immediate reconstruction of a pediatric vascular malformation in the mandible: case report [J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod, 2010, 109: 517-524.
- [13] Siniscalchi EN, Minutoli F, Catalfamo L, et al. Intraosseous mandibular arteriovenous malformations: case report[J]. J Craniomaxillofac Surg, 2009, 37: 106-109.
- [14] Kaderbhai J, Breik O, Heggie AA, et al. High-flow paediatric mandibular arteriovenous malformations: case reports and a review of current management[J]. Int J Oral Maxillofac Surg, 2017, 46: 1650-1655.
- [15] 朱仕逸,张广,亓敬涛,等. 经静脉途径治疗脑动静脉畸形研究进展[J]. 介入放射学杂志, 2017, 26: 1147-1150.
- [16] Yakes W, Yakes A, Rohlfes F, et al. Current controversies and the state of the art in endovascular treatment of vascular malformations[J]. J Intervent Med, 2018, 1: 65-69.
- [17] Chandra RV, Leslie-Mazwi TM, Orbach DB, et al. Transarterial embolization of mandibular arteriovenous malformations using ONYX[J]. J Oral Maxillofac Surg, 2014, 72: 1504-1510.
- [18] Wang D, Su L, Han Y, et al. Absolute ethanol embolisation of mandibular arteriovenous malformations following direct percutaneous puncture and release of coils via a microcatheter [J]. Eur J Vasc Endovasc Surg, 2017, 53: 862-869.

(收稿日期:2019-04-19)

(本文编辑:边 皓)