

·临床研究 Clinical research·

儿童咯血介入栓塞治疗后复发 8 例

李 静, 高明明, 吴长华, 王 亮, 宋 丹, 郭 磊

【摘要】 目的 分析儿童咯血经导管支气管动脉栓塞术(BAE)后复发的原因,为预防复发提供支持。**方法** 回顾性分析 2014 年 6 月至 2018 年 6 月 46 例咯血患儿经 BAE 治疗后复发的 8 例临床资料,通过支气管动脉再次造影综合分析复发原因。**结果** BAE 术后 8 例咯血复发患儿再次造影发现,复发咯血由原责任血管再通所致 2 例,异常供血支气管动脉遗漏栓塞所致 2 例,病灶新生侧支循环供血动脉建立所致 3 例,血管变异超选失败所致 1 例。二次 BAE 治疗后随访 6 个月至 3 年。7 例患儿未再出现咯血症状,1 例再次出现咯血,给予外科右肺下叶切除后治愈。**结论** BAE 可有效治疗咯血,完全栓塞是关键。但术中造影应仔细,避免遗漏,再通和新发动脉也值得注意,是咯血复发原因之一。

【关键词】 咯血;支气管动脉;支气管动脉栓塞;儿童

中图分类号:R722.12 文献标志码:B 文章编号:1008-794X(2020)-10-1021-04

Recurrence of hemoptysis after interventional embolization in 8 sick children LI Jing, GAO Mingming, WU Changhua, WANG Liang, SONG Dan, GUO Lei. Department of Vascular Anomalies and Interventional Radiology, Qilu Children's Hospital of Shandong University, Jinan, Shandong Province 250022, China

Corresponding author: GUO Lei, E-mail: etjrxgl@hotmail.com

【Abstract】 Objective To analyze the causes of hemoptysis recurrence in sick children with hemoptysis after bronchial artery embolization(BAE) treatment so as to provide theoretical support for preventing recurrence. **Methods** A total of 46 sick children with hemoptysis were treated with BAE during the period from 2014 to 2018 at authors' hospital. Among them, 8 sick children developed recurrent hemoptysis, and their clinical data were retrospectively analyzed. Reexamination of bronchial arteriography was carried out, and the causes of hemoptysis recurrence were comprehensively analyzed. **Results** In the 8 sick children with recurrent hemoptysis after BAE, angiography showed that the causes of hemoptysis recurrence included recanalization of primary responsible vessels($n=2$), missing embolization of bronchial artery providing abnormal blood supply ($n=2$), newly-established collateral circulation blood supply artery($n=3$) and failure of super-selective catheterization due to variation of vascular anatomy ($n=1$). BAE treatment was carried out once again, and the sick children were followed up for 3-36 months. Hemoptysis no longer occurred in 7 sick children. One sick child developed recurrence of hemoptysis, the surgical resection of right lower lobe had to be carried out and the sick child was cured. **Conclusion** Interventional percutaneous BAE can effectively treat hemoptysis, and complete occlusion of the responsible vessel is the therapeutic key point. The intraoperative angiographic findings should be carefully observed, all the blood supply arteries of the lesion should not be missed. The recanalization of primary responsible vessels and the establishment of new collateral circulation blood supply arteries are the main causes of recurrent hemoptysis. (J Intervent Radiol, 2020, 29: 1021-1024)

【Key words】 hemoptysis; bronchial artery; bronchial artery embolization; child

DOI:10.3969/j.issn.1008-794X.2020.10.013

作者单位: 250022 济南 山东大学齐鲁儿童医院(济南市儿童医院)血管瘤科和介入医学科(李 静、吴长华、王 亮、宋 丹、郭 磊);山东省胸科医院医学影像科(高明明)

通信作者: 郭 磊 E-mail: etjrxgl@hotmail.com

咯血是喉及喉以下呼吸道出血经口排出的一种临床症状,可表现为痰中带血或咯鲜血。婴幼儿大多不能自主排痰,常在出血量较大时才表现咯血症状,重者可威胁生命,是婴幼儿常见急症之一。大咯血单纯保守治疗死亡率高,可达 50%~100%^[1],死亡原因主要为支气管内积血窒息而非失血所致低氧血症^[2-3]。经导管支气管动脉栓塞术(bronchial arterial embolization,BAE)治疗成年人咯血的效果已得到广泛认可,尤其是对于内科保守治疗无效的咯血已成为首选方法。目前儿童咯血治疗应用 BAE 报道较少,对于栓塞后复发咯血治疗尚无统一方案。本研究回顾性分析济南市儿童医院 3 年内 BAE

术后咯血复发患儿临床资料,探讨 BAE 术后复发原因及治疗方案。

1 材料与方法

1.1 临床资料

回顾性分析 2014 年 6 月至 2018 年 6 月 46 例咯血患儿经 BAE 治疗后复发的 8 例临床资料(表 1)。所有患儿初次均以咯血症状就诊,经积极内科治疗后效果欠佳,部分患儿术前影像学检查可见迂曲的支气管动脉存在。术前所有患儿均经支气管镜检查 and 增强 CT 明确出血部位,告知家长治疗风险并签署知情同意书。该技术已通过医院伦理委员会审核。

表 1 8 例咯血复发患儿临床资料

患者 性别 年龄 /岁	病因	咯血量/mL· 24 h ⁻¹ ·kg ⁻¹	异常动 脉/支	出血部位	复发 次数	复发出血来源
1 女 11	支气管动脉-肺动脉瘘	6.12	2	右肺中叶	1	变异支气管动脉
2 女 5	支气管动脉-肺动脉瘘	5.40	3	右肺下叶	2	支气管动脉、右胸廓内、右甲状腺干、左锁骨下动脉
3 女 3	支气管动脉-肺动脉瘘、支气管扩张	3.53	2	右肺下叶	1	支气管动脉、右胸廓内动脉
4 男 8	支气管动脉-肺动脉瘘	6.73	2	右肺下叶、左肺下叶	1	右侧胸廓内动脉
5 女 12	纤毛不动综合征、支气管扩张	2.16	2	右肺下叶、左肺下叶	1	支气管动脉
6 女 12	肺含铁血黄素沉着症、支气管动脉-肺动脉瘘	5.40	2	右肺下叶、左肺下叶	1	左侧胸廓内
7 男 5	支气管动脉-肺动脉瘘	2.90	2	右肺中叶、左肺下叶	1	支气管动脉
8 男 9	支气管动脉-肺动脉瘘	3.52	2	右肺下叶、左肺下叶	1	锁骨下动脉新发血管

8 例咯血复发患儿均再次接受支气管动脉造影并再次栓塞责任血管。结合再次动脉造影特点,分析咯血复发原因及预后,优化儿童咯血 BAE 治疗方案。

1.2 咯血定义

大量咯血指每日咯血量 ≥ 500 mL 或每次 ≥ 100 mL;中等量咯血指每日咯血量 100~300 mL;小量咯血指每日咯血量 <100 mL^[4]。儿童咯血尚无统一标准。有学者提出,咯血量 <20 mL/24 h 为少量;20~100 mL/24 h 为中等量; >100 mL/24 h 为大量^[5]。亦有文献报道,儿童咯血量 >8 mL·24 h⁻¹·kg⁻¹ 为大量咯血^[6]。

1.3 BAE 术

手术患儿取仰卧位,全身麻醉后常规双侧腹股沟区消毒、铺巾,Seldinger 法穿刺右股动脉,成功后置入 4 F 小儿血管鞘;插入 4 F 猪尾导管并送至降主动脉作造影,明确责任支气管动脉;4 F Cobra 导管联合 1.98~2.6 F 微导管配合微导丝超选择至异常支气管动脉作造影,评估支气管动脉分支走行、形态、轮廓、血流状态和病灶染色情况,如发现支气管动脉远端出现对比剂外溢、停滞,肺动脉提前显影、肺静脉提前显示,或病灶区域内血管迂曲增多、

多发新生、紊乱血管网;在确认病变血管与脊髓动脉无交通情况下,采用粒径 300~500 μ m 聚乙烯醇(PVA)颗粒或粒径 100~300 μ m 三丙烯明胶微粒球(embosphere)进行栓塞,栓塞终点为完全栓塞病灶血管或对比剂在目标血管内呈柱形显示;栓塞异常支气管动脉后,再常规对肋间动脉、双侧锁骨下动脉分支、胸廓内动脉、膈下动脉等复查造影,以避免遗漏责任血管。

2 结果

2.1 初次 BAE 术

BAE 术后 8 例咯血复发患儿中男 3 例,女 5 例,平均年龄(8.13 \pm 3.48)岁;均以咯血症状就诊,平均咯血量为(4.47 \pm 1.65) mL·24 h⁻¹·kg⁻¹;3 例出血部位为右肺,5 例双肺均有出血灶;6 例存在支气管动脉-肺动脉瘘(其中 1 例伴发有支气管扩张),1 例为纤毛不动综合征伴支气管扩张,1 例为肺含铁血黄素沉着症。

所有复发患儿首次 BAE 术前内科保守治疗效果均欠佳,行降主动脉造影发现右肺出血的 3 例患儿均为右支气管动脉和右胸廓内动脉分支供血。双

肺出血患儿左右两侧支气管动脉和双侧胸廓内动脉均可能存在异常。所有患儿经 BAE 术后均取得良好效果,其中 2 例术中部分纤细供血动脉超选择插管失败未予栓塞,但术后咯血得以暂时纠正。

2.2 再次动脉造影及其特点

8 例咯血患儿复发时间为 BAE 术后平均(8.5 ± 11.8)个月,其中 5 例再次咯血前有肺部感染,3 例复发无明显诱因;咯血量不等,但均较初诊时减少,咯血部位均与初诊相一致。复发后内科保守治疗效果均欠佳,再次支气管动脉造影发现复发咯血由原责任血管再通所致 2 例,异常供血支气管动脉遗漏栓塞所致 2 例,病灶新生侧支循环供血动脉建立所致 3 例,血管变异超选失败所致 1 例。

再次动脉造影特点:①支气管动脉-肺动脉畸

形复发表现为多条异常侧支循环血管供应病灶区域,原栓塞动脉较前明显迂曲、纤细,且无法确定主要异常供血血管;②弹簧圈栓塞无效的再通动脉,较初次造影更显粗大迂曲;③初次遗漏细小动脉较前增粗迂曲;④伴有异常体循环动脉,如同侧或对侧锁骨下动脉、膈下动脉、甲状腺干等分支。

2.3 二次 BAE 术后效果

8 例复发患儿二次 BAE 治疗后随访 6 个月至 3 年。6 例随访至今未再出现咯血(图 1),1 例随访 12 个月再次复发,第 3 次给予 BAE 治疗后症状好转,1 例二次 BAE 术时因存在多支新生细小异常迂曲动脉无法超选择插管,术后出血虽暂时停止,但 1 个月后再咯血,于外科行右肺下叶切除术。



①术前支气管动脉造影示胸廓内动脉发出异常动脉病灶,可见肺动脉早显;②初次 BAE 术后,异常动脉和肺动脉早显消失;③二次术前造影示原栓塞动脉更加粗大,肺动脉早显更明显;④二次 BAE 术后,异常动脉和肺动脉早显消失

图 1 二次 BAE 术治疗咯血复发患儿影像

3 讨论

咯血是一种可危及生命的临床症状,常见病因为支气管扩张、肿瘤、结核及肺曲霉感染。儿童咯血较为罕见,病因与成人不同,主要有特发性肺含铁血黄素沉着症、肺部感染、肺血管畸形、先天性心脏病和肿瘤^[7]。因此,儿童咯血治疗不同于成人,内科治疗多以原发病处理为主,如对感染患儿应用抗生素治疗,对特发性肺含铁血黄素沉着症患儿应用激素冲击疗法等,对原发病治疗无效患儿采用联合对症治疗^[8]。有研究表明,纤维支气管镜用于局部止血具有效果确切、操作简便、安全可靠等特点,也可用于早期明确病因,进行对症治疗^[9]。随着影像设备图像质量提高、导管和栓塞材料改良,BAE 术已成为儿童咯血首选治疗方式,不仅可提高咯血患儿生存率,还能为外科手术争取时间,为后续治疗提供支持。但儿童介入手术具有血管纤细、操作空间小等特点,使之成为儿童咯血 BAE 术后复发的危险因

素,因此选择造影导管十分必要^[10]。

3.1 责任动脉与危险交通支

BAE 术中遗漏异位支气管动脉和非支气管性体动脉(NBSA)往往是栓塞失败或咯血复发的重要原因^[11-12]。另外,支气管动脉和 NBSA 之间可能存在许多交通支^[13],因此术前 CTA 检查不仅可明确责任动脉,还可减少手术时间。

术中识别脊髓动脉尤为重要。任何体动脉均可能存在脊髓动脉分支,典型造影表现为“发夹征”,而责任动脉表现为管腔增粗扭曲($>2\text{ mm}$)、局部血供丰富和多发新生血管、支气管动脉血流直接进入肺动脉或肺静脉和支气管动脉瘤等^[14-15],对比剂外渗相对比较少见(3.6%~10.7%)^[16]。

3.2 细小异常动脉处理

儿童血管较细,尤其是 3 岁以下患儿。由于操作空间有限,超选择动脉插管难度较大。目前本中心造影导管型号最小为 4 F,即便以造影导管钩住

异常支气管动脉开口,采用同轴技术送入微导丝时也容易脱出,有时不用微导丝而直接用微导管超选择目标动脉更容易送入。无法超选择插管时,可依据 110/100 原则切开 4 F 猪尾造影导管,配合 1.98~2.6 F 微导管超选择,可有效提高超选率。细小异常动脉不完全栓塞,也是术后咯血复发危险因素之一。

3.3 栓塞材料选择

本中心多采用粒径 300~500 μm PVA 颗粒栓塞咯血患儿。PVA 颗粒应现配现用,防止放置时间过长引起颗粒体积增大,另外用 0.9%氯化钠溶液稀释对比剂减低其黏稠度,利于栓塞颗粒到达远端动脉,使栓塞更彻底。目前本中心对咯血患儿均未单独应用弹簧圈行栓塞治疗。对于支气管动脉-肺动脉瘘引起的咯血患儿,若责任动脉较粗大且可超选择远端,则采用 PVA 颗粒+弹簧圈栓塞。

应尽量选择小的栓塞颗粒,但颗粒过小可能会进入支气管动脉正常小分支,引起其供血组织坏死,也可能通过异常的支气管动脉-肺循环吻合口,导致肺梗死或体循环栓塞^[17]。支气管动脉-肺循环吻合口口径可达 325 μm ,因此一般选择粒径>300 μm 颗粒较合理,且可减少脊髓缺血和支气管坏死等并发症。有研究发现粒径 355~500 μm 、500~710 μm 两种栓塞颗粒的栓塞效果无明显差异^[15]。吕铁伟等^[18]研究认为,责任动脉栓塞时不能保证全部顺利构建介入输送系统,且细小动脉不能容纳最小堵闭装置;造影主观意识不够、造影视窗小,易造成少见部位来源的异常动脉封堵不完全;细小的异常动脉在富含养料、压力高的动脉血流供给下,会随时间延长逐渐变粗变长,最终成为咯血复发的主要异常血管。

3.4 栓塞目标

本研究认为,儿童咯血介入治疗目的首先是即刻止血,应做到“见好就收”,不能盲目追求远期疗效,否则会增加栓塞风险。

总之,BAE 术可有效治疗咯血,完全栓塞是关键。但术中造影应仔细,避免遗漏,再通和新发动脉也值得注意,是咯血复发原因之一。儿童咯血不同于成人,病因往往以肺部炎症及先天性肺血管发育异常为主,随原发疾病进展可能并发新的出血灶,因此对复发咯血除了重复介入治疗,还应积极处理原发病。对于肺动静脉畸形和支气管动脉-肺动脉瘘等畸形所致大咯血,介入栓塞仅作为紧急止血处理,出血停止后还应行外科手术治疗。

[参考文献]

- [1] Najarian KE, Morris CS. Arterial embolization in the chest[J]. J Thorac Imaging, 1998, 13: 93-104.
- [2] Marshall TJ, Jackson JE. Vascular intervention in the thorax: bronchial artery embolization for haemoptysis[J]. Eur Radiol, 1997, 7: 1221-1227.
- [3] 郦琳琳,梁慧,王全,等.纤维支气管镜在儿童咯血病因诊断和治疗中的价值[J].临床儿科杂志,2014,32:238-241.
- [4] 中华医学会.临床诊疗指南-呼吸病学分册[M].北京:人民卫生出版社,2009:167
- [5] Naum R, Speed B. Hemoptysis in pediatric patients[J]. Cureus, 2019, 11: e4305.
- [6] Davoodi M, Kordi M, Gharibvand MM, et al. Hemoptysis: comparison of diagnostic accuracy of multi detector CT scan and bronchoscopy[J]. Glob J Health Sci, 2015, 7: 373-377.
- [7] 陈和斌,陆小霞,蒋鲲.儿童反复咯血的病因及临床诊治分析[J].中国当代儿科杂志,2014,16:281-284.
- [8] Anwar D, Schaad N, Mazzocato C. Aerosolized vasopressin is a safe and effective treatment for mild to moderate recurrent hemoptysis in palliative care patients[J]. J Pain Symptom Manage, 2005, 29: 427-429.
- [9] 吴春雪,陈强.儿童咯血治疗进展[J].中国实用儿科杂志,2015,30:461-465.
- [10] 丁健,陈亮,王永利,等.支气管动脉造影导管在咯血治疗中的应用[J].介入放射学杂志,2017,26:736-739.
- [11] Chalumeau-Lemoine L, Khalil A, Prigent H, et al. Impact of multidetector CT-angiography on the emergency management of severe hemoptysis[J]. Eur J Radiol, 2013, 82: e742-e747.
- [12] Mishra A, Mathur A, Pathak K, et al. Bronchial artery embolization in treatment of hemoptysis: treatment efficacy and complications at a tertiary care chest centre[J]. Med J Armed Forces India, 2018, 74: 352-357.
- [13] Li PJ, Yu H, Wang Y, et al. Multidetector computed tomography angiography prior to bronchial artery embolization helps detect culprit ectopic bronchial arteries and non-bronchial systemic arteries originating from subclavian and internal mammary arteries and improve hemoptysis-free early survival rate in patients with hemoptysis[J]. Eur Radiol, 2019, 29: 1950-1958.
- [14] Jiang S, Sun XW, Yu D, et al. Endovascular embolization of bronchial artery originating from the upper portion of aortic arch in patients with massive hemoptysis[J]. Cardiovasc Intervent Radiol, 2014, 37: 94-100.
- [15] Chun JY, Morgan R, Belli AM. Radiological management of hemoptysis: a comprehensive review of diagnostic imaging and bronchial arterial embolization[J]. Cardiovasc Intervent Radiol, 2010, 33: 240-250.
- [16] Kuang HY, Li Q, Xiang P, et al. Potential factors affected safety and efficacy of transcatheter plug closure for pediatric hemoptysis with anomalous bronchial arteries[J]. J Interv Cardiol, 2019, 2019: 5408618.
- [17] Kervancioglu S, Bayram N, Gelebek Yilmaz F, et al. Radiological findings and outcomes of bronchial artery embolization in cryptogenic hemoptysis[J]. J Korean Med Sci, 2015, 30: 591-597.
- [18] 吕铁伟,祝虹宇,易岂建,等.儿童血管相关性咯血的规范诊断与治疗[J].中华实用儿科临床杂志,2018,33:979-982.

(收稿日期:2019-08-05)

(本文编辑:边信)