

血管内栓塞治疗儿童颅内动脉瘤效果分析

吴宣萱, 袁永杰, 李攀星, 郭新宾, 管 生

【摘要】 目的 探讨儿童颅内动脉瘤(PIA)临床特点及血管内栓塞治疗效果。**方法** 回顾性分析 2012 年 1 月至 2019 年 12 月郑州大学第一附属医院采用血管内栓塞治疗的 10 例 PIA 患儿临床资料。**结果** 10 例 PIA 患儿中男 7 例,女 3 例,年龄为(7.7±4.8)岁。动脉瘤位于椎动脉 3 例,位于基底动脉、右大脑中动脉、左大脑前动脉、左豆纹动脉、左脉络膜前动脉、左大脑后动脉及左后交通动脉各 1 例;先天性动脉瘤 4 例,夹层动脉瘤 3 例,假性动脉瘤 3 例;瘤体破裂和未破裂各 5 例。血管内治疗应用单纯弹簧圈填塞动脉瘤 4 例,弹簧圈闭塞载瘤动脉 4 例,Glubran 胶栓塞动脉瘤 2 例。术前、术后 3 d、术后 3~6 个月改良 Rankin 量表(mRS)评分分别为(0.90±0.54)分、(0.80±0.60)分、(0.30±0.70)分,术前 mRS 评分与术后 3~6 个月比较差异有统计学意义($P<0.05$)。**结论** PIA 多为先天性,好发于椎-基底动脉,血管内栓塞治疗安全有效。

【关键词】 血管内治疗; 儿童; 颅内动脉瘤

中图分类号:R743 文献标志码:A 文章编号:1008-794X(2022)-05-0438-04

Endovascular embolization for intracranial aneurysms in sick children: analysis of its curative effect

WU Xuanxuan, YUAN Yongjie, LI Panxing, GUO Xinbin, GUAN Sheng. Department of Neurosurgery, Affiliated Children's Hospital of Chongqing Medical University, Chongqing 401122, China

Corresponding author: GUAN Sheng, E-mail: gsradio@126.com

【Abstract】 Objective To discuss the clinical characteristics of pediatric intracranial aneurysm(PIA) and to investigate the therapeutic effect of endovascular embolization for PIA. **Methods** The clinical data of 10 sick children with PIA, who were treated with endovascular embolization at the First Affiliated Hospital of Zhengzhou University of China during the period from January 2012 to December 2019, were retrospectively analyzed. **Results** Of the 10 PIA sick children, 7 were males and 3 were females, with a mean age of (7.7±4.8) years. The aneurysm were located at the vertebral artery($n=3$), basilar artery($n=1$), right middle cerebral artery($n=1$), left anterior cerebral artery($n=1$), left beanstria artery($n=1$), left anterior choroid artery($n=1$), left posterior cerebral artery($n=1$) and left posterior communicating artery($n=1$). The lesions included cystic aneurysm($n=4$), dissecting aneurysm($n=3$) and pseudoaneurysm($n=3$). The ruptured aneurysm and non-ruptured aneurysm were seen in 5 patients each. Endovascular therapy was performed by using spring coil filling($n=4$), spring coil occlusion of parent artery($n=4$), and Glubran glue embolization($n=2$). The preoperative, postoperative 3-day, and postoperative(3-6)-month mean modified Rankin scale(mRS) scores were (0.90±0.54) points, (0.80±0.60) points, and (0.30±0.70) points respectively. Statistically significant difference in mRS score existed between preoperative value and postoperative(3-6)-month one($P<0.05$). **Conclusion** Clinically, most PIA are congenital aneurysm, and PIA occurs easily at the vertebrobasilar artery. Endovascular embolization is a clinically safe and effective treatment. (J Intervent Radiol, 2022, 31: 438-441)

【Key words】 endovascular treatment; child; intracranial aneurysm

DOI:10.3969/j.issn.1008-794X.2022.05.003

作者单位: 401122 重庆医科大学附属儿童医院神经外科(吴宣萱);郑州大学第一附属医院神经介入科(袁永杰、李攀星、郭新宾、管 生)

通信作者: 管 生 E-mail: gsradio@126.com

颅内动脉瘤常见于成年人,儿童颅内动脉瘤(pediatric intracranial aneurysms,PIA)占 0.5%~4.6%^[1]。随着血管影像技术普及和提高,PIA 检出较前增多^[2]。PIA 与成人颅内动脉瘤相比,不仅发生率不同,临床表现也有不同特点^[3],加上儿童有更长生存周期,治疗更应慎重。目前颅内动脉瘤治疗方法有血管内治疗和开颅夹闭或缝合,PIA 更多应用血管内治疗^[4]。本研究通过分析 PIA 临床特点,探讨 DSA 导引下血管内治疗 PIA 的效果。

1 材料与方法

1.1 一般资料

收集 2012 年 1 月至 2019 年 12 月郑州大学第一附属医院采用血管内栓塞治疗的 10 例 PIA 患儿临床资料。纳入标准:①年龄≤14 岁;②临床和随访资料齐全;③符合颅内动脉瘤影像学诊断标准;④无肝、肾、心功能异常,无对比剂过敏史。排除标准:①颅内动静脉畸形团内伴有动脉瘤;②要求手术开颅治疗;③对比剂过敏。入组患儿家属术前均签署血管内栓塞治疗知情同意书。

1.2 血管内治疗方法

所有患儿术前接受全脑血管 DSA 造影和患侧三维旋转重建,精确测量动脉瘤大小、瘤颈宽度、载瘤动脉远近段血管直径,射线照射时间尽可能控制在 30 min 内。患儿取仰卧位,经口气管插管全身麻醉,常规双侧腹股沟区消毒铺巾;采用 Seldinger 技术穿刺股动脉,置入 5~6 F 动脉导管鞘,穿刺成功后经静脉推注肝素(2/3 mg/kg)使全身肝素化,1 h 后再次给予初始剂量半量,2 h 后给予初始 1/4 量;5 F 多功能导管配合 0.035 英寸泥鳅导丝置于患侧颈内动脉或椎动脉起始直段,根据精确测量的动脉瘤大小、瘤颈宽度、载瘤动脉远近段血管直径,采用 3 种不同的治疗方法。①瘤颈窄:栓塞导管易到达目标位置,路图下将头端塑形的微导管送入瘤腔内,透视下依次植入弹簧圈,弹簧圈稳定后予以解脱,填塞完毕经导引导管造影证实载瘤动脉通畅、动脉瘤不显影;②位于椎动脉及大脑动脉分支末端的较大动脉瘤:路图下将头端塑形的微导管送入载瘤动脉远端,透视下依次植入弹簧圈,弹簧圈稳定后予以解脱,闭塞完毕经导引导管造影证实动脉瘤不显影;③动脉瘤位于小分支远端:漂浮微导管尽可能送达动脉瘤,推注 Glubran 胶,观察弥散情况,满意后撤出微导管。栓塞完毕后常规 DSA 造影,了解栓塞情况,同时完善术中 CT,评估有无颅内出血。

1.3 围手术期管理

术前常规对症降颅压、抗血管痉挛等处理。术中需要常规肝素化血液。对于单纯栓塞或 Glubran 胶填塞患儿,不需要抗血小板治疗。对于动脉瘤占位效应明显患儿,术后给予甘露醇或激素治疗。

1.4 疗效评估及随访

术后即刻行 DSA 检查,根据 Raymond 分级评价动脉瘤即刻栓塞效果(I 级:致密栓塞;II 级:大部分栓塞,瘤颈残余;III 级:部分栓塞)。术前、术后 3 d、术后 3~6 个月,根据改良 Rankin 量表(mRS)评分评价疗效。

1.5 统计学方法

采用 SPSS 22 软件进行统计学分析。数据比较用 Wilcoxon 符号秩检验,mRS 评分以均数±标准差表示, $P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

10 例 PIA 患儿临床资料见表 1。患儿年龄 4 个月至 14 岁,平均(7.7±4.8)岁;0~4 岁 3 例,5~9 岁 3 例,10~14 岁 4 例;男 7 例,女 3 例。以头痛症状就诊 7 例,抽搐 1 例,左肢活动不利 1 例,颅脑手术后 1 例;瘤体破裂 5 例,未破裂 5 例。术前 mRS 评分 0 分 1 例、1 分 8 例、2 分 1 例,平均(0.90±0.54)分。单纯弹簧圈填塞 4 例、弹簧圈闭塞载瘤动脉瘤 4 例、Glubran 胶栓塞 2 例,术中未出现动脉瘤破裂出血、弹簧圈逃逸等并发症。术后即刻 DSA 检查显示,Raymond 分级 I 级 8 例、II 级 2 例。术后 3 d mRS 评分 0 分 3 例、1 分 6 例、2 分 1 例,平均(0.80±0.60)分;术后 3~6 个月 mRS 评分 0 分 8 例、1 分 1 例、2 分 1 例,平均(0.30±0.70)分。术前 mRS 评分与术后 3 d 相比,差异无统计学意义($P>0.05$);术后 3 d mRS 评分与术后 3~6 个月相比,差异有统计学意义($P<0.05$);术前 mRS 评分与术后 3~6 个月相比,差异有统计学意义($P<0.05$)。

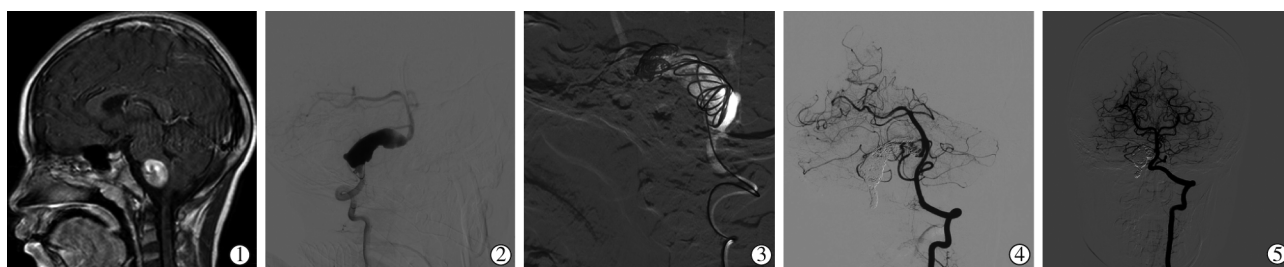
Raymond 分级 II 级患儿中 1 例术后 5 个月随访时复发,予以外科开颅动脉瘤夹闭术,术后复查瘤颈残留,随访 2 年动脉瘤未破裂;另 1 例术后 1 年复发,再次行双微导管致密栓塞,随访 4 年 5 个月无复发。患儿 5 治疗和随访影像见图 1。

3 讨论

Nam 等^[4]回顾性研究 23 例≤20 岁颅内动脉瘤患者临床资料,其中 0~4 岁 2 例,5~9 岁 4 例,10~14 岁 6 例,发病患儿随着年龄增加而增多。本组

表 1 10 例 PIA 患者临床诊治和随访资料

病 例	性 别	年 龄 (岁)	临床表现	部位	破裂 与 否	大 小	形 状	性 质	术前 mRS 评分	治疗方法	Raymond 分级	术后 mRS 评分		随访 (月)	遗留 问题
												3 d	3~6 个月		
1	女	3	抽搐	右大脑中动脉 M2 段	是	中	囊性	先天性	1	弹簧圈填塞	II	1	0	42	
2	男	6	头痛	左椎动脉 V4 段	否	大	梭形	夹层	1	弹簧圈闭塞	I	1	0	113	
3	男	7	右眼眶疼痛	基底动脉顶端	否	中	囊性	先天性	1	弹簧圈填塞	II	1	0	53	
4	女	8	头痛呕吐	左脉络膜前动脉	是	小	囊性	假性	1	Glubran 栓塞	I	0	0	94	
5	男	10	头晕头痛	右椎动脉 V4 段	否	巨大	梭形	夹层	1	弹簧圈闭塞	I	1	0	50	
6	男	13	头痛	左后交通动脉	是	小	囊性	先天性	1	弹簧圈填塞	I	0	0	32	
7	男	13	左肢体活动不利	右椎动脉 V4 段	否	中	梭形	夹层	2	弹簧圈闭塞	I	2	1	42	头晕
8	女	14	颅脑手术后	左豆纹动脉	否	小	囊性	假性	0	Glubran 栓塞	I	0	0	104	
9	男	0.3	烦躁头痛	左大脑前动脉 A3 段	是	巨大	囊性	假性	1	弹簧圈闭塞	I	1	2	43	脑积水
10	男	3	头痛呕吐	左大脑后动脉 P2 段	是	中	囊性	先天性	1	弹簧圈填塞	I	1	0	68	



①术前 MRI 矢状位示延髓腹侧占位性病变;②术中 DSA 示右椎动脉 V4 段巨大夹层动脉瘤;③路图引导下填塞弹簧圈;④术后即刻造影未见瘤体显影;⑤术后 50 个月随访造影未见动脉瘤复发

图 1 患儿 5 治疗和随访影像

患儿中 0~4 岁 3 例,5~9 岁 3 例,10~14 岁 4 例,基本与之相符。成人颅内动脉瘤发病存在性别差异,女性多于男性。Kim 等^[5]报道中男女比为 1:1.56。本组患儿中男女比为 1:0.43,不同于成人颅内动脉瘤患者性别比,与 Saraf 等^[6]研究一致。

PIA 病因尚不清楚,根据其特征大致可分为先天性、假性、夹层及感染性。先天性 PIA 通常因患儿血管发育不成熟,动脉血管壁薄弱处受血流冲击而容易发生;假性 PIA 患儿往往有颅脑外伤或颅脑手术史,使血管壁破裂形成血肿,并经血流持续冲击而形成;夹层 PIA 是各种病理因素将动脉内膜、中膜撕开,经血流冲击所形成;感染性 PIA 是由其他部位感染的细菌栓子脱落进入颅内血管并遭破坏所导致。本组 PIA 患儿以先天性为主。Nam 等^[4]报道少数 PIA 患儿伴有川崎病、脑颜面血管瘤综合征等。Slator 等^[7]报道 PIA 患儿中 22%伴有其他疾病。本组患儿未伴有类似疾病,可能与样本量小有关。

PIA 患儿临床表现大多(61%~75%)以头痛为主^[8],其中 49%会出现意识散失,35%表现为抽搐,18%表现为肢体活动障碍^[9];55%~87%以瘤体破裂致蛛网膜下腔出血就诊,26%甚至出现二次破裂出血^[10]。本组患儿临床表现与既往文献报道相吻合,以

头痛症状就诊 7 例,抽搐 1 例,左肢活动不利 1 例,颅脑手术后 1 例;瘤体破裂 5 例,未破裂 5 例。本组瘤体破裂比率较成人患者稍低,这可能与样本量较小有关。本组患儿瘤体破裂就诊 3 例,均为小、中型先天性囊性 PIA,据此推测小、中型先天性囊性 PIA 更容易破裂。

颅内动脉瘤 90%以上分布在脑底动脉环附近,其中大多位于颈内动脉系统。本组患儿中 4 例 PIA 位于椎-基底动脉系统,其中 3 例位于椎动脉 V4 段,这不同于成人动脉瘤分布。据此推测 PIA 多好发于椎-基底动脉系统。Saraf 等^[6]研究认为 PIA 位于后循环动脉系统比率高于成人颅内动脉瘤,且多数是大型动脉瘤。本组研究与之略有不符,2/4 例椎-基底动脉 PIA 为大型、巨大型。

目前颅内动脉瘤治疗更倾向于血管内治疗,主要包括单纯弹簧圈填塞、弹簧圈闭塞载瘤动脉、栓塞剂栓塞、球囊辅助下弹簧圈填塞、支架辅助下弹簧圈填塞及密网支架植入。单纯弹簧圈填塞技术适用瘤颈窄、载瘤动脉易到达的动脉瘤,优点是不需要抗血小板治疗,但也存在着弹簧圈逃逸、栓塞不致密、易复发等风险。本组患儿中 4 例接受单纯弹簧圈填塞,其中 2 例瘤颈部残余,分别于术后 5 个

月、1 年复发,再次行手术治疗,整个治疗过程中未再出血。单纯弹簧圈填塞技术还可应用于载瘤动脉闭塞,通过填塞弹簧圈牺牲载瘤动脉,但术前需要进行球囊闭塞实验。该技术尤其适用于椎-基底动脉系统动脉瘤,因其仅累及一侧椎动脉,且侧支循环代偿良好,不累及小脑后下动脉分支。破裂椎动脉夹层动脉瘤中 30%~70%会再出血,建议早期治疗^[11];未破裂椎动脉夹层动脉瘤往往是巨大动脉瘤,占位效应挤压脑干可引起相应症状,也应及时治疗。本研究中对 3 例椎动脉未破裂夹层动脉瘤患儿应用弹簧圈闭塞椎动脉,均达到 I 级栓塞,随访期有 1 例有头晕症状,可能与一侧椎动脉闭塞脑缺血有关,但随后生长发育过程中对侧椎动脉可能会代偿性增粗,头晕症状会改善,将予以远期随访。朱辰路等^[12]研究报道椎-基底动脉出血病死率、致残率较高,认为对于夹层动脉瘤,预防瘤体出血比保护血管更重要。这也是对本研究应用闭塞椎动脉接受治疗夹层动脉瘤的支持。本组 1 例大脑前动脉 A3 段假性动脉瘤患儿经闭塞载瘤动脉技术治疗后出现脑积水,考虑为前期出血所致。许红森等^[13]采用双支架技术治疗未破裂椎动脉夹层动脉瘤,复发率较高。本研究中的应用弹簧圈闭塞载瘤动脉患儿在随访期无复发。

液体栓塞剂治疗颅内动脉瘤的特点是栓塞剂可顺应动脉瘤固定形态而固化,以减少残留死腔,达到完全闭塞的效果,但也存在栓塞剂向远端飘逸的风险。该方法适用于载瘤动脉较小的远端动脉瘤。本组有 2 例小型假性 PIA 分别位于脉络膜前动脉和豆纹动脉,予以 Glubran 胶栓塞后均达到 I 级栓塞,随访时 mRS 评分均为 0 分。Crevecoeur 等^[14]也证实液体栓塞剂治疗感染性 PIA 的效果良好。

PIA 血管内治疗还包括球囊辅助下动脉瘤栓塞、支架辅助下动脉瘤栓塞及密网支架植入术,这 3 种治疗方法均需要口服抗血小板聚集药。鉴于儿童有更长的生存周期,血管直径会随年龄增长而增粗,密网支架植入治疗 PIA 应慎重,且支架植入后需要长期抗血小板聚集治疗,存在口腔黏膜、消化道、皮肤等出血风险。Ares 等^[15]报道采用密网支架治疗 1 例 2 岁 PIA 患儿,但随访时间短,远期临床疗效未确定。Garrido 等^[16]报道对 15 例 PIA 患儿行血管内治疗和开颅手术治疗,1 年随访时 14 例疗效良好,1 例死亡。本组 10 例患儿中 4 例单纯弹簧圈填塞、4 例弹簧圈闭塞载瘤动脉瘤、2 例 Glubran 胶栓塞,8 例达到 I 级栓塞,术后 mRS 评分与术前相比有改善,差异均有统计学意义,因此血管内栓塞术是治疗 PIA 的有效方法。

本研究的局限性为回顾性分析、病例数较少,病例选择存在一定主观性,无法排除选择性偏倚;仅涉及术前与术后相关指标对比,缺乏血管内治疗与开颅手术治疗对比分析。本研究远期随访结果有待于进一步验证。

[参考文献]

- [1] Gemmete JJ, Toma AK, Davagnanam I, et al. Pediatric cerebral aneurysms[J]. Neuroimaging Clin N Am, 2013, 23:771-779.
- [2] Huang J, McGirt MJ, Gailloud P, et al. Intracranial aneurysms in the pediatric population: case series and literature review[J]. Surg Neurol, 2005, 63: 424-432.
- [3] Chen R, Zhang S, Guo R, et al. Pediatric intracranial distal arterial aneurysms: report of 35 cases[J]. Acta Neurochir(Wien), 2018, 160: 1633-1642.
- [4] Nam SM, Jang D, Wang KC, et al. Characteristics and treatment outcome of intracranial aneurysms in children and adolescents [J]. J Korean Neurosurg Soc, 2019, 62: 551-560.
- [5] Kim T, Lee H, Ahn S, et al. Incidence and risk factors of intracranial aneurysm: a national cohort study in Korea[J]. Int J Stroke, 2016, 11: 917-927.
- [6] Saraf R, Shrivastava M, Siddhartha W, et al. Intracranial pediatric aneurysms: endovascular treatment and its outcome[J]. J Neurosurg Pediatr, 2012, 10: 230-240.
- [7] Slatore N, Talibi SS, Mundil N, et al. Paediatric intracranial aneurysms: a British institutional review[J]. Childs Nerv Syst, 2019, 35: 1197-1205.
- [8] Kim M, Lee HS, Lee S, et al. Pediatric intracranial aneurysms: favorable outcomes despite rareness and complexity[J]. World Neurosurg, 2019, 125: e1203-e1216.
- [9] Mehrotra A, Nair AP, Das KK, et al. Clinical and radiological profiles and outcomes in pediatric patients with intracranial aneurysms[J]. J Neurosurg Pediatr, 2012, 10: 340-346.
- [10] Buis DR, van Ouwerkerk WJ, Takahata H, et al. Intracranial aneurysms in children under 1 year of age: a systematic review of the literature[J]. Childs Nerv Syst, 2006, 22: 1395-1409.
- [11] Kolic Z, Kukuljan M, Vukas D, et al. Locked-in syndrome in a patient with acute obstructive hydrocephalus, caused by large unruptured aneurysm of the basilar artery (BA)[J]. Br J Neurosurg, 2017, 31: 738-740.
- [12] 朱辰路, 孙阳阳, 杨振兴, 等. 血管内栓塞治疗后循环破裂动脉瘤 24 例[J]. 中国临床神经外科杂志, 2021, 26: 189-190.
- [13] 许红森, 徐立权, 顾宇翔, 等. 双支架治疗未破裂椎动脉夹层动脉瘤效果分析[J]. 介入放射学杂志, 2021, 30: 761-764.
- [14] Crevecoeur TS, Salehi A, Miller BA, et al. Onyx embolization of a ruptured anterior inferior cerebellar artery in a neonate[J]. Childs Nerv Syst, 2019, 35: 373-378.
- [15] Ares WJ, Tonetti DA, Greene S, et al. Pipeline embolization of an infectious basilar artery aneurysm in a 2-year-old child: case report, discussion of the literature and perioperative considerations [J]. Oper Neurosurg(Hagerstown), 2019, 17:E224-E228.
- [16] Garrido E, Metayer T, Borha A, et al. Intracranial aneurysms in pediatric population: a two-center audit[J]. Childs Nerv Syst, 2021, 37: 2567-2575.

(收稿日期:2021-08-11)

(本文编辑:边 倩)