

• 血管介入 Vascular intervention •

“限流法”在儿童头颈部 Puig III 型静脉畸形治疗中的优势作用

丁 语, 赵 磊, 贺 艺, 徐伟洋, 徐 森, 范新东

【摘要】 目的 探讨“限流法”在儿童头颈部 Puig III 型静脉畸形治疗中的安全性和有效性。**方法** 回顾性分析 5 例头颈部 Puig III 型静脉畸形患儿, 采用类似肿胀麻醉技术的“限流法”阻断回流静脉, 然后进行硬化剂栓塞静脉畸形, 随访观察疗效、不良反应和并发症。**结果** 5 例患儿均为 Puig III 型, 均采用“限流法”治疗, 共治疗 11 次。无水乙醇单次注射平均剂量 (6.45 ± 0.25) mL, 3% 聚多卡醇泡沫硬化剂单次注射平均剂量 (0.70 ± 0.12) mL。3 例治愈, 2 例基本治愈, 有效率为 100%。术后随访 3~12 个月, 患儿面容改善满意度 100%。**结论** 对于儿童头颈部 Puig III 型静脉畸形治疗, “限流法”可显著提高治疗效果, 节约患儿的治疗费用。

【关键词】 限流法; 静脉畸形; 微创介入

中图分类号: R739.91 文献标志码: A 文章编号: 1008-794X(2023)-07-0638-04

The advantages of "flow restriction method" in the treatment of Puig type III venous malformation of the head and neck in children DING Yu, ZHAO Lei, HE Yi, XU Weiyang, XU Miao, FAN Xindong.

The Affiliated Children's Hospital of Zhengzhou University, Zhengzhou, Henan Province 450000, China

Corresponding author: FAN Xindong, E-mail: fanxindong@aliyun.com

【Abstract】 Objective To investigate the safety and efficacy of "flow restriction method" in the treatment of Puig type III venous malformations (VM) of the head and neck in children. **Methods** The clinical data of 5 child patients with Puig type III VM of the head and neck were retrospectively analyzed. The "flow restriction method", which was similar to the swelling anesthesia technique, was used to obstruct the draining vein of the lesion, then, the embolization of VM with sclerosing agent was accomplished. The child patients were followed up to observe the efficacy, adverse effects and complications. **Results** All the 5 child patients suffered from Puig type III VM of the head and neck and were treated with "flow restriction method" technique. A total of 11 treatments were performed in the 5 child patients. The average dose of single injection of absolute ethanol was (6.45 ± 0.25) mL, and the average dose of single injection of 3% polydocal foam scleroagent was (0.70 ± 0.12) mL. Three child patients were cured and two child patients were basically cured, with a response rate of 100%. The child patients were follow-up for 3-12 months, the satisfaction with the improvement of facial features was 100%. **Conclusion** For the treatment of Puig type III VM of the head and neck in child patients, the "flow restriction method" technique can significantly improve the therapeutic effect and save the medical cost. (J Intervent Radiol, 2023, 32: 638-641)

【Key words】 flow restriction method; venous malformation; minimally-invasive intervention

静脉畸形(venous malformation, VM)属于低流速的先天性血管畸形, 也是最常见的先天性脉管畸形, 出生即存在, 可累及全身任何部位, 其中头、颈

及颌面部为高发部位, 四肢及躯干次之; 随年龄与身体等比例增长, 区别于血管瘤, VM 从不自然消退, 可导致明显的外观畸形或功能受损, 严重者致

DOI: 10.3969/j.issn.1008-794X.2023.07.003

作者单位: 450000 河南郑州 郑州大学附属儿童医院(丁 语、赵 磊、贺 艺、徐伟洋、徐 森); 上海交通大学医学院附属第九人民医院(范新东)

通信作者: 范新东 E-mail: fanxindong@aliyun.com

残或致死^[1]。VM 的发病率小于 0.5‰,发病与性别无关,在青春期和育龄期生长尤为明显^[2-3]。VM 治疗方法有多种,包括传统手术切除、冷冻治疗、电化学治疗、系统性靶向药物、血管内硬化疗法和激光等^[4]。目前国际主流的治疗方法和国内专家共识均首推血管内硬化疗法,这是 VM 的主要治疗方法^[5]。临床上常用 Puig 分型^[6]选择合适的硬化剂及栓塞材料。VM 的 Puig III 型常因为病灶流速快,治疗效果差,花费高,无疑成了治疗中令人头痛的类型。郑州大学附属儿童医院自 2020 年 1 月至 2022 年 5 月在 DSA 引导下采用“限流法”为 5 例头颈部 VM 患儿做硬化治疗,取得满意效果。现报道如下。

1 材料与方法

1.1 临床资料

回顾 2020 年 1 月至 2022 年 5 月介入血管瘤和血管外科共收治的 5 例颈部 VM 患儿,其中男性 3 例,女性 2 例,平均年龄 (8.45 ± 3.26) 岁;根据 2016 版中华医学会血管瘤与脉管畸形诊疗指南^[5]诊疗标准,均表现为颌面部皮下青色包块,体位试验阳性,结合 MRI 检查均符合头颈部 VM 诊断。所有患儿均以容貌困扰就诊,无明显疼痛、压痛或功能障碍。该 5 例患儿家长或因经济承受能力有限或因担心对患儿发育产生影响,均明确拒绝体内植入弹簧圈等异物,术前由家长签署介入手术知情同意书。

1.2 治疗方法

患儿均接受气管插管全身麻醉,手术开始前静脉给予地塞米松 3~5 mg。术前根据 MRI 标记病灶范围,用 22 G 头皮针穿刺,回抽可见暗红色静脉血,挤压病灶可快速流出。DSA 引导下经皮作病灶造影,证实与 MRI 所显示病灶一致,根据影像学表现,归为 Puig III 型。由于畸形血管团回流静脉粗大,回流速度较快,使用 0.5%利多卡因+0.01%盐酸肾上腺素稀释液,仿照“肿胀麻醉”^[7]技术,在畸形血管团的“回流静脉”附近浅筋膜下注射麻醉肿胀液 2~3 mL,然后复查 DSA 经皮病灶造影,可见病灶的回流静脉消失或直径缩小 90%以上,且病灶显影明显缓慢;如不满意,可局部继续追加少许肿胀液,经超声检查,未压迫动脉。接下来给予病灶充盈对比剂 1/2 量的无水乙醇(单次治疗最大剂量不超过 0.5 mL/kg),注射完毕 10 min 后复查造影,如病灶不显影即停止注射,如仍残留病灶,有回流静脉显影且回流缓慢,可补充少量 Tessari 法制备的

3%聚多卡醇(60 mg:2 mL)泡沫硬化剂。注射肿胀液 10 min 后,如需继续治疗病灶,复查局部彩超,如肿胀液吸收,颈外静脉回流增多,可局部继续补充少量肿胀液。治疗过程中严密监测患儿动态血压、心率及气道压。术后病灶及回流静脉均无需加压包扎。次日常规静脉注射地塞米松 2~5 mg/d,防止迟发性过敏反应。8 周后复诊,如外形未明显改善或 MRI 仍提示有较大病灶残留,可予再次治疗;如外形明显改善且 MRI 显示无较大病灶残留,可暂院外观察随访。

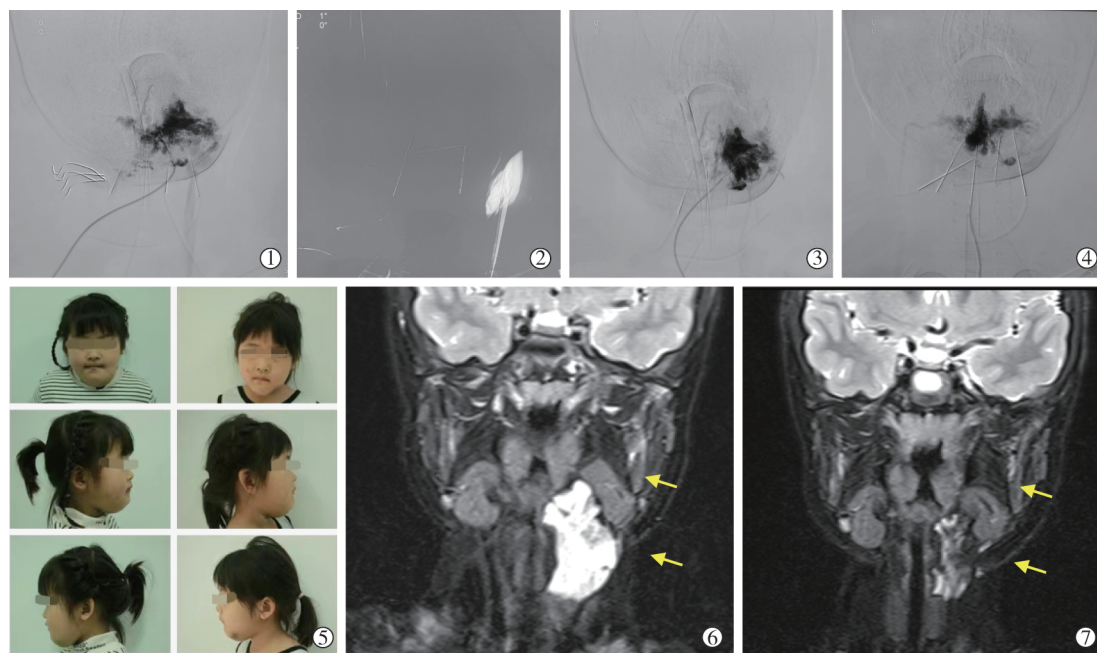
疗效判定标准^[8]:①治愈:畸形血管团完全消失,随访无复发;②基本治愈:畸形血管团大部分消失,缩小>80%,但外观尚未完全恢复正常,尚需治疗;③有效:畸形血管团明显缩小,缩小<80%,需继续治疗;④无效:畸形血管团无缩小,症状无改善。有效率=(治愈例数+基本治愈例数+有效例数)/总例数 $\times 100\%$ 。

2 结果

5 例患儿均为 Puig III 型 VM,其中 2 例患儿因病灶回流静脉粗大,回流速度较快,曾采用术中注射时压迫回流静脉的方法治疗共 6 次,家长反映面部外观畸形改善不明显,后 5 例患儿都采用“限流法”治疗,共治疗 11 次。无水乙醇单次应用平均剂量 (6.45 ± 0.25) mL,3%聚多卡醇原液单次应用平均剂量 (0.70 ± 0.12) mL。经采用“限流法”治疗后,其中 3 例达治愈标准,2 例基本治愈,有效率为 100%。所有患儿局部注射肿胀液约 5 min 后,经彩超可见局部静脉压迫情况逐渐减轻,静脉内无血栓形成,血流通畅,局部皮肤无不良反应。患儿病灶均无局部皮肤坏死、溃疡发生,1 例术后 2 h 发生皮肤红疹,对症处理后好转,术后 6 h 病灶局部肿胀明显,患儿烦躁,无呼吸困难,无疼痛,给予冰敷,约 48 h 后肿胀稍减轻,1 周后明显改善,局部肿胀和硬结情况可在 1~3 个月内逐渐消失。患儿围术期和术后随访中未发现肺栓塞、肺纤维化、深静脉血栓、面神经损害或死亡。术后随访 3~12 个月,患儿面容改善满意度 100%(图 1)。

3 讨论

VM 是一种由于血管内皮细胞形态异常而导致的先天性脉管系统发育畸形,组织学上主要表现为血管生成紊乱和内膜平滑肌增生^[9]。血管内硬化疗法是目前国内外主流推荐的治疗方式^[10],它是



① DSA 引导下经皮病灶造影,可见粗大的回流静脉,属于 Puig III 型;② 透视下经皮在病灶旁粗大引流静脉周围注射肿胀液,暂时压闭颈外静脉;③ 再次病灶局部造影,可见病灶内造影剂弥散缓慢,回流静脉“消失”,肿胀液压迫回流静脉的限流有效;④ 经皮注射硬化剂治疗后,再次病灶造影检查,可见病灶几近消失,残余病灶向对侧引流;⑤ 术后 8 周患儿正侧位随访对比,面部畸形改善效果显著;⑥ 介入治疗前磁共振;⑦ 治疗后磁共振

图 1 典型应用“限流法”治疗的 VM 病例治疗过程和手术前后效果对比

将硬化剂注入畸形血管腔内引起血管内皮损害,导致局部血栓形成,最终病灶纤维化闭塞^[11]。无水乙醇作为一种永久栓塞剂,血管内治疗 VM 后复发率低,目前最为常用,有逐渐取代外科切除术的趋势^[12]。对于病灶较大、回流静脉较多且回流速度较快的病灶,无水乙醇具有卓越的治疗效果,其强烈的破坏作用,可明显减少治疗次数,但如应用不当,可使皮肤组织坏死,严重时还可引起心肺功能异常和血尿等全身不良反应^[13]。Hammer 等^[14]研究发现,单次用量过高可导致患者肾小管堵塞,严重时导致肾功能衰竭,单次治疗时注射无水乙醇应用量与并发症的发生呈明显正相关^[15]。无水乙醇应用于儿童,其剂量应相当谨慎,儿童急性乙醇中毒可导致代谢性酸中毒、横纹肌溶解、癫痫发作,甚至呼吸心跳骤停等严重不良反应^[16]。VM 病灶的构成情况及引流静脉是不同的,为了便于更好的针对性治疗,Puig 等^[6]于 2003 年提出了一个关于 VM 的简单描述性分类系统,已被广泛应用于介入治疗,其依据畸形血管团的造影将 VM 分为孤立型病变不伴有回流静脉、病变引流到正常回流静脉、病变引流到扩张回流静脉、病变为异常扩张静脉 4 种类型。对于病灶较大,或回流速度较快的 III、IV 型静脉畸形,推荐无水乙醇硬化治疗,同时可配合使用栓塞材料以降低病

灶回流速度(如弹簧圈),这样可显著增加无水乙醇的效力并防止过多硬化剂进入体循环^[17]。儿童并非成人的缩小版,考虑儿童正处在生长发育期,回流静脉为扩张的“正常应存在”的静脉,如果闭塞该回流静脉,可能存在不可预知的风险和较多的担忧:①如为治疗畸形血管团而堵塞该部位的回流静脉,对患儿远期的生长发育是否存在影响,目前缺乏临床大规模、多中心的前瞻性研究;②回流静脉为容量性血管,可扩张性强,闭塞或降低回流静脉的流速,需要较大直径的栓塞材料及数量较多的弹簧圈,围术期及远期栓塞材料移位、脱落或继发血栓蔓延的风险,无疑都是患儿和家长无法承受的;③高额的栓塞材料费用和长期将栓塞材料留在体内,绝大多数家长无法承受或持强烈的反对态度。

颌面部的静脉畸形主要严重影响患儿的外观,随着病情的进展会对患儿造成难以逆转的心理创伤,对患儿和其家庭的生活质量产生巨大的影响。因此,当我们在成人常规使用一些栓塞材料来增加疗效,提高患者的治愈率时,应考虑儿童这一特殊群体制定“灵活、经济”的治疗策略,在追求疗效的同时兼顾降低剂量和降低远期影响,提升总体安全性,绝不能盲目追求“根治”。采用“限流法”临时阻

断回流静脉,可较为“有效”地增加硬化剂在病灶内的作用时间,阻止或极大降低硬化剂流入体循环中,避免了“人工压迫”回流静脉的不确定性、降低医生的射线暴露伤害,以及局部麻醉肿胀液的缓慢吸收可有效降低一些尚不稳固的血栓发生脱落的风险。希望利用肿胀液压迫回流静脉的“限流法”,能为后续的临床治疗方案提供思路,从而更好地改善患者预后。

[参考文献]

- [1] Richter GT, Friedman AB. Hemangiomas and vascular malformations: current theory and management[J]. Int J Pediatr, 2012, 2012: 645678.
- [2] Seront E, Vikkula M, Boon LM. Venous malformations of the head and neck[J]. Otolaryngol Clin North Am, 2018, 51: 173-184.
- [3] Ali S, Mitchell SE. Outcomes of venous malformation sclerotherapy: a review of study methodology and long-term results[J]. Semin Intervent Radiol, 2017, 34: 288-293.
- [4] Hage AN, Chick JFB, Srinivasa RN, et al. Treatment of venous malformations: the data, where we are, and how it is done[J]. Tech Vasc Interv Radiol, 2018, 21: 45-54.
- [5] 中华医学会整形外科学分会血管瘤和脉管畸形学组. 血管瘤和脉管畸形诊断和治疗指南(2016版)[J]. 组织工程与重建外科杂志, 2016, 12: 63-93.
- [6] Puig S, Casati B, Staudenherz A, et al. Vascular low-flow malformations in children: current concepts for classification, diagnosis and therapy[J]. Eur J Radiol, 2005, 53: 35-45.
- [7] Rasmussen LH, Bjoern L, Lawaetz M, et al. Randomized trial comparing endovenous laser ablation of the great saphenous vein with high ligation and stripping in patients with varicose veins: short-term results[J]. J Vasc Surg, 2007, 46: 308-315.
- [8] 张靖, 李海波, 周少毅, 等. 儿童静脉畸形介入治疗硬化剂无水乙醇与平阳霉素效果的对比研究[J]. 中华放射学杂志, 2012, 46: 350-353.
- [9] Kangas J, Natynki M, Eklund L. Development of molecular therapies for venous malformations[J]. Basic Clin Pharmacol Toxicol, 2018, 123(Suppl 5): 6-19.
- [10] Yakes W, Yakes A, Rohlfis F, et al. Current controversies and the state of the art in endovascular treatment of vascular malformations[J]. J Interv Med, 2019, 1: 65-69.
- [11] Gurgacz S, Zamora L, Scott NA. Percutaneous sclerotherapy for vascular malformations: a systematic review[J]. Ann Vasc Surg, 2014, 28: 1335-1349.
- [12] Lee BB, Baumgartner I, Berlien P, et al. Diagnosis and treatment of venous malformations. consensus document of the international union of phlebology (IUP): updated 2013[J]. Int Angiol, 2015, 34: 97-149.
- [13] 丁语, 王梦宇, 靳三丁, 等. 无水乙醇和泡沫硬化剂治疗儿童四肢静脉畸形的体会[J]. 介入放射学杂志, 2019, 28: 938-941.
- [14] Hammer FD, Boon LM, Mathurin P, et al. Ethanol sclerotherapy of venous malformations: evaluation of systemic ethanol contamination[J]. J Vasc Interv Radiol, 2001, 12: 595-600.
- [15] 国际血管联盟中国分部血管畸形专家委员会. 静脉畸形中国专家共识[J]. 介入放射学杂志, 2019, 28: 307-311.
- [16] Ali S, Weiss CR, Sinha A, et al. The treatment of venous malformations with percutaneous sclerotherapy at a single academic medical center[J]. Phlebology, 2016, 31: 603-609.
- [17] 吴海威, 于森, 郑家伟. 口腔颌面部静脉畸形诊治: 经验与进展[J]. 中国口腔颌面外科杂志, 2021, 19: 186-192.

(收稿日期: 2022-06-15)

(本文编辑: 茹实)