

• 病例报告 Case report •

孤立性支气管血管瘤致反复咯血 1 例

林志鹏, 黄大钊, 邹旭公, 胡小龙, 陈源, 李晓群, 张健

【关键词】 支气管血管瘤; 支气管动脉栓塞术; 咯血

中图分类号: R734.1 文献标志码: D 文章编号: 1008-794X(2024)-05-0576-04

Interventional embolization for solitary bronchial hemangioma complicated by recurrent hemoptysis: report of one case LIN Zhipeng, HUANG Dabai, ZOU Xugong, HU Xiaolong, CHEN Yuan, LI Xiaoqun, ZHANG Jian. Department of Interventional Medicine, Zhongshan Municipal People's Hospital, Zhongshan, Guangdong Province 528400, China

Corresponding author: ZHANG Jian, E-mail: wy18988583838@163.com (J Intervent Radiol, 2024, 33: 576-579)

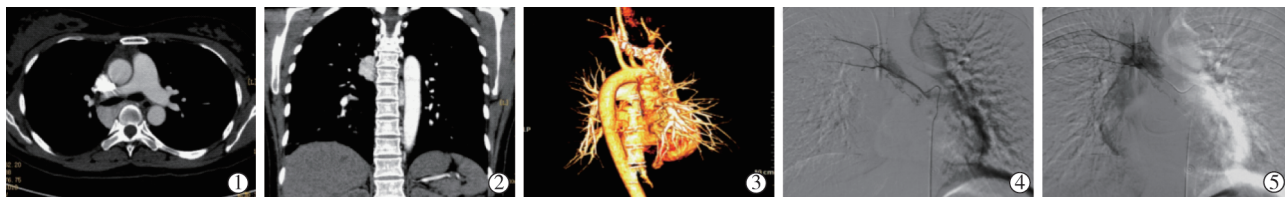
【Key words】 bronchial hemangioma; bronchial artery embolization; hemoptysis

1 临床资料

患者女, 26 岁, 因“反复咯血 4 个月, 再发 1 d”于 2018 年 3 月 27 日收入院。体格检查: 体温 36.5℃, 脉搏 92 次/min, 呼吸 22 次/min, 血压 124/64 mmHg (1 mmHg=0.133 kPa), 血氧饱和度 96%。神志清晰, 双肺呼吸音粗, 右肺可闻及湿性啰音, 心率齐, 无杂音。腹部平软, 全腹无压痛及反跳痛。入院实验室检查: 血红蛋白 113 g/L、血小板计数 $229 \times 10^9/L$ 、凝血酶原时间 10.8 s。肺部增强 CT 检查: 纵隔内上腔静脉后方、右主支气管周围可见团片状血管强化影, 最大断面大小 30 mm×28 mm×47 mm, 考虑为血管瘤 (图 1①~③)。患者入院后予吸氧、止血、制酸、护胃等对症处理。入院当天患者突发大咯血 300 mL, 血氧饱和度降至 82%, 脉搏 124 次/min, 呼吸 32 次/min, 血压 104/75 mmHg。遂转入重症监护室 (ICU), 予气管插管、止血对症支持治疗。呼吸内科、心胸外科及介入医学科紧急多学科诊疗团队 (multiple disciplinary team, MDT) 讨论, 讨论意见: 根据病灶大小、性质、位置判断, 外科手术难度

高、风险大, 可尝试先行介入造影, 必要时栓塞治疗。患者家属商议后要求行介入治疗。急诊送介入室, 铺巾消毒术区, 术中以 0.2% 利多卡因局部麻醉右股动脉鞘, 采用 Seldinger 技术穿刺右股动脉成功后, 置入 5 F 导管鞘。主动脉造影未见异常支气管动脉, 引入 Corba/Simmons/Yashiro 导管、微导管尝试寻找也未见。超选择性插管至右侧第 6、7 肋间动脉 (图 1④⑤), 造影可见右上肺一血管团染色, 聚乙烯醇 (polyvinyl alcohol, PVA) 颗粒 (100~300 μm , 300~500 μm) 栓塞右侧第 6、7 肋间动脉至末梢动脉闭塞。再选择性插管至相邻肋间动脉、膈动脉、左右锁骨下动脉、腹腔干均未见异常。术毕拔除股动脉鞘管压迫止血 15 min, 加压包扎。术后第 2 天复查: 血红蛋白 105 g/L、血小板计数 $220 \times 10^9/L$ 、凝血酶原时间 10.9 s, 脉搏 90 次/min, 呼吸 16 次/min, 血压 115/60 mmHg, 血氧饱和度 100%。患者术后未再出现咯血, 顺利拔除气管插管后出院。

2018 年 7 月 27 日患者因“突发咯血 1 h”收入院。患者



①②术前胸部增强 CT 横断位、矢状位示上腔静脉后方、右主支气管周围团片状血管强化影, 考虑为血管瘤; ③CT 三维重建示血管瘤形态; ④⑤术中 DSA 造影示右侧第 6、7 肋间动脉参与血管瘤供血

图 1 第 1 次介入治疗影像

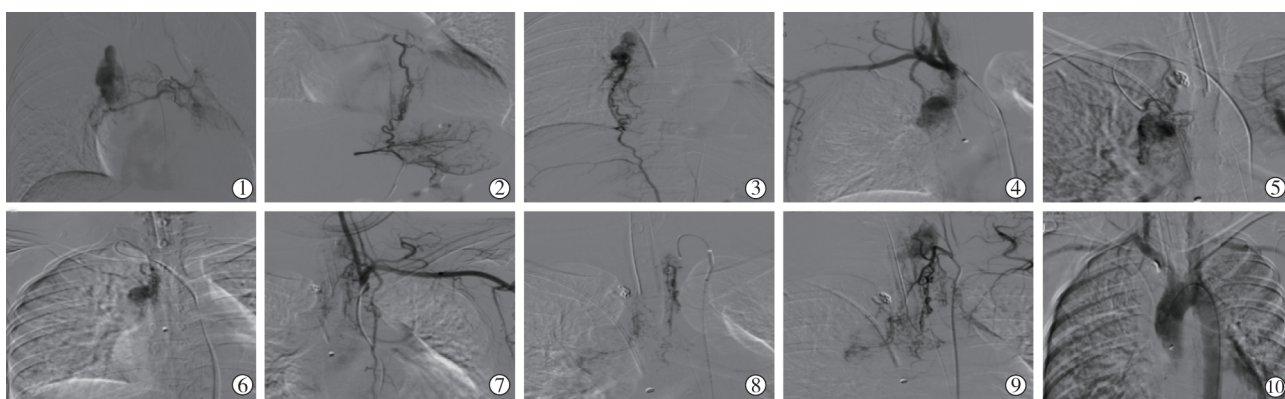
DOI: 10.3969/j.issn.1008-794X.2024.05.021

作者单位: 528400 广东中山 中山市人民医院介入医学科

通信作者: 张健 E-mail: wy18988583838@163.com

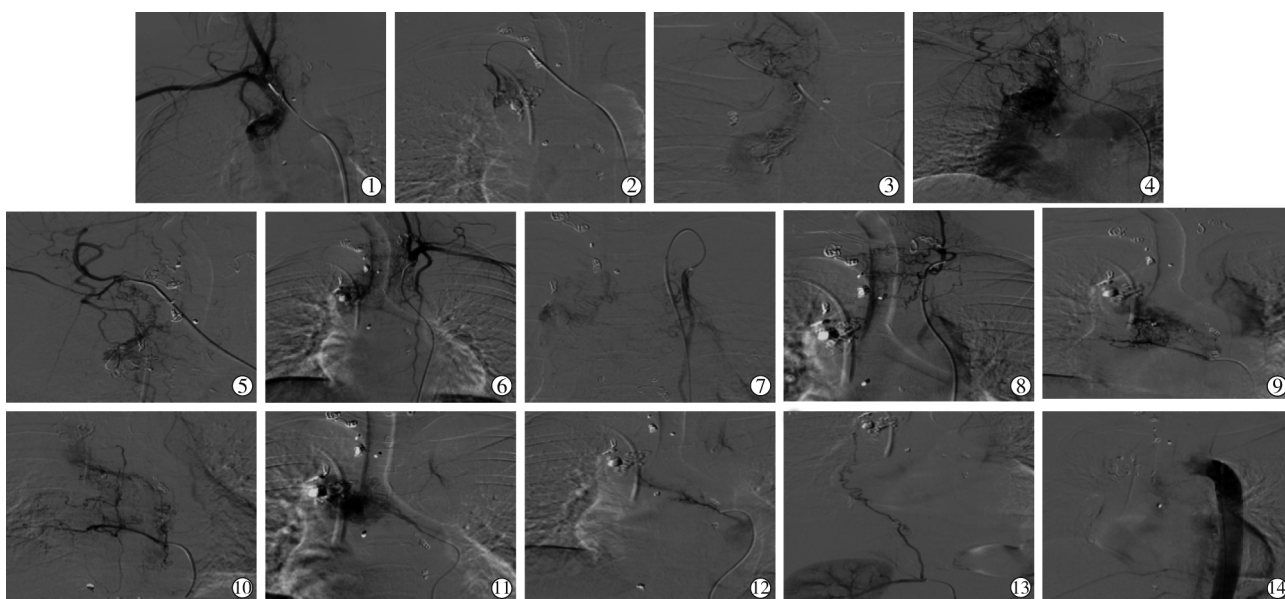
入院后持续咯血量超 500 mL,即予气管插管、止血、补液对症支持治疗。呼吸内科、心胸外科及介入医学科 MDT 会诊讨论结果:外科手术难度高、风险大,患者家属若同意可急诊手术,或可行介入造影必要时栓塞治疗。患者家属商议后要求进行介入治疗。急诊送介入室,术中使用 5 F Corba、5 F 单弯导管、5 F Yashiro 导管、微导管,超选择性插管至右支气管动脉、双侧锁骨下动脉(双侧甲状颈干动脉、双侧内乳动脉)、右膈动脉(图 2①~⑨),造影可见以上分支血管供血右上肺血管团,以 PVA 颗粒(50~100 μm 、100~300 μm 、300~500 μm)、线圈(2 mm、3 mm、4 mm)栓塞右上肺血管团供血动脉。术后主动脉造影未见侧支血管(图 2⑩),患者未再出现咯血,顺利出院。

2019 年 10 月 1 日患者因“反复咯血 12 h”收入院。入院后患者间断多次咯血,每次量约 10 mL。综合呼吸内科、心胸外科及介入医学科 MDT 会诊意见,建议外科手术。患者家属仍拒绝外科手术治疗。遂急诊送介入室,术中使用 5 F Corba、5 F 单弯导管、5 F Yashiro、微导管,超选择性插管至右支气管动脉、双侧锁骨下动脉(双侧甲状颈干动脉、双侧内乳动脉)、右侧第 6、7 肋间动脉、右肾动脉、右肩胛上动脉、右膈动脉(图 3①~⑬),造影可见以上分支血管供血右上肺血管团,并可见血管瘤供血动脉-肺动脉分流,予 PVA 颗粒(50~100 μm 、100~300 μm 、300~500 μm)、线圈(2 mm、3 mm、4 mm)及 α -氰基丙烯酸正丁酯(NBCA)栓塞右上肺血管团供血动脉。术后主动脉造影未见侧支血管(图 3⑭),术毕患者



①支气管动脉参与血管瘤供血;②胃左动脉分支参与血管瘤供血;③右膈动脉分支参与血管瘤供血;④右锁骨下动脉造影可见血管瘤形态;⑤右内乳动脉分支参与血管瘤供血;⑥右甲状颈干分支参与血管瘤供血;⑦左锁骨下动脉造影可见血管瘤形态;⑧左内乳动脉分支参与血管瘤供血;⑨左甲状颈干分支参与血管瘤供血;⑩术后主动脉造影未见血管瘤染色

图 2 第 2 次介入治疗影像



①右锁骨下动脉造影可见血管瘤形态;②右内乳动脉分支参与血管瘤供血;③右甲状颈干分支参与血管瘤供血;④血管瘤供血动脉-肺动脉瘘形成;⑤右肩胛上动脉分支参与血管瘤供血;⑥左锁骨下动脉造影可见血管瘤形态;⑦左内乳动脉分支参与血管瘤供血;⑧左甲状颈干分支参与血管瘤供血;⑨右第 6 肋间动脉分支参与血管瘤供血;⑩右第 7 肋间动脉分支参与血管瘤供血;⑪支气管动脉参与血管瘤供血;⑫支气管动脉参与血管瘤供血;⑬右肾动脉分支参与血管瘤供血;⑭术后主动脉造影未见血管瘤染色

图 3 第 3 次介入治疗影像

咯血停止。术后第 15 日,患者再发咯血 300 mL,血氧饱和度下降至 79%。遂紧急行气管插管,转入 ICU 予对症支持治疗。急诊送介入手术,行主动脉、肺动脉造影,仅可见胃左动脉分支血管供应血管瘤(见图 4),予 PVA 颗粒(100~300 μm)栓塞。术后患者仍持续咯血,使用气管内球囊压迫等抢救措施,但动脉血氧饱和度仍下降至 70%,心率上升至 >150 次/min,血压下降至 70/40 mmHg。随后启动体外膜肺氧合(extracorporeal membrane oxygenation, ECMO)治疗,急诊外科手术。术中可见血管瘤和右纵隔胸膜弥漫性异常血管生长,血管瘤底部位于右主支气管,异常血管丛延伸至右上叶支气管和中间支气管,行右上肺叶及支气管血管瘤切除术(见图 5)。术后患者气道无再出血,术后 48 h 移除 ECMO 机,后续顺利转至普通病房并出院。目前该患者已随访 4 年,无再复发咯血。

2 讨论

支气管血管瘤多为先天性血管发育异常所致,目前全世界范围内报道的病例数很少,对其发病机制仍缺乏相关研究。目前多数学者认为支气管血管瘤与血管新生和血管生成密切相关,血管生成起主要作用^[1]。Sweetser 研究将气管血管瘤划分为婴儿型和成人型^[2]。成人气管、支气管血管瘤极其罕见。成人支气管血管瘤弥漫性血管增生引起大量咯血是致命的。本例 29 岁女性因支气管血管瘤致反复大咯血多次行支气管动脉栓塞术(bronchial arterial embolization, BAE)治疗,最后一次 BAE 治疗后仍大量咯血,最终患者在 ECMO 支持下接受右上肺叶及支气管血管瘤切除术,后续随访 4 年未再出现咯血。

支气管血管瘤诊断主要根据 CT 或 CTA、纤维支气管镜、组织病理学检查等结果。目前国内外报道大多根据活检后病理提示做出诊断。支气管血管瘤可引起患者咳嗽、咯血和呼吸困难等临床表现。2009 年, Narita 等^[3]报道分析

日本所有年龄组支气管血管瘤病例,中位年龄为 53 岁,男性与女性受影响程度相同,83% 患者以轻度至重度咯血为主要症状。

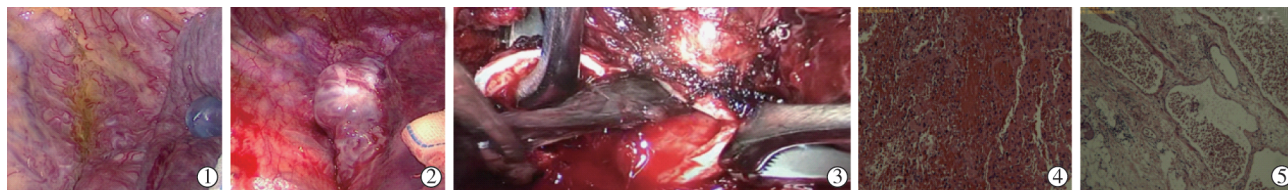
支气管血管瘤治疗方法尚未确立,目前主要有外科切除(肺楔形切除、肺叶切除)、支气管动脉结扎、BAE 等治疗方法。BAE 具有微创、手术时间短、保留肺功能等优点^[4]。Remy 等^[5]于 1974 年首次报道采用 BAE 治疗良性和恶性原因咯血。Panda 等^[6]系统回顾分析显示,BAE 临床成功率为 70%~99%。BAE 栓塞材料包括明胶海绵、PVA 颗粒、线圈及 NBCA^[7]。明胶海绵为中期栓塞剂,2~6 周内被吸收,可使已栓塞血管有重新开放可能,现较少应用。PVA 颗粒、线圈和 NBCA 均为永久性栓塞剂,BAE 术中应用较广泛。但 PVA 颗粒或线圈若未充分放置于血管瘤出血源处,可能会使血管瘤侧供血动脉开放,引起短期内再出血。NBCA 注射入体内与血液接触后迅速凝固,对血管瘤血管巢栓塞有更好效果,然而注射操作不当会导致 NBCA 涌入肺部或全身循环,引起严重并发症。因此推荐线圈/PVA 颗粒与 NBCA 结合使用,以获得更牢固的栓塞效果。外科切除和支气管动脉结扎也是支气管血管瘤治疗方法,但这些方法并发症及死亡率较高。外科手术可完全切除血管瘤,即使是存在支气管动脉-肺动脉瘘和侧支循环的复杂病例也无再出血风险,但其非常有创,且会降低肺功能。有时可选择支气管动脉结扎,以避免肺功能丧失,但不能避免血管瘤建立侧支循环,引起再出血。本病例经多次 BAE 术后仍有出血,考虑其原因有:①血管瘤血管巢栓塞不彻底,引起血管增生、侧支循环开放,使血管瘤持续生长;②血管瘤与肺动脉或静脉吻合或瘘管化,支气管动脉-肺动脉瘘存在是大量咯血危险因素,因为支气管动脉由全身循环供血,其压力和流速高于肺动脉,使得血管瘤血管巢内压力及血液流速均很高^[8-9]。

成人支气管血管瘤实验室检查常无异常发现。对于有咯



①主动脉造影未见血管瘤染色;②胃左动脉分支参与血管瘤供血;③肺动脉造影未见血管瘤染色

图 4 第 4 次介入治疗影像



①术中右上纵隔可见大量异常血管增生;②血管瘤内可见大量纵横交错的动静脉;③右中间支气管被打开,可见气道中血块阻塞;④⑤病理镜检见血管壁厚薄不均,血管扩张充血伴出血,淋巴组织增生,肺泡上皮未见异型增生

图 5 外科手术中情况及支气管血管瘤病理图像

血临床表现患者,应考虑此病可能,完善增强 CT 或支气管镜检查有助于明确诊断,宜慎重活检;对于不存在支气管动脉-肺动/静脉瘘患者,建议可选择 BAE 作为首选治疗手段;对于存在支气管动脉-肺动/静脉瘘患者,若 BAE 效果欠佳,建议尽早行外科切除。临床医师应加强对支气管血管瘤的认知,避免漏诊、误诊。

[参考文献]

- [1] 中华医学会整形外科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, 97.
- [2] Sweetser TH. Hemangioma of the larynx[J]. Arch Otolaryngol (1925), 1949, 50: 835.
- [3] Narita Y, Kojima H, Honjo S, et al. Asymptomatic primary racemose hemangioma of the bronchial artery showing remarkable enlarged and convoluted vessels[J]. J Jpn Soc Resp Endoscopy, 2009, 31: 152-158.
- [4] 严海涛, 施海彬, 张金星, 等. 非肿瘤性咯血二次支气管动脉栓塞治疗效果及预后因素分析[J]. 介入放射学杂志, 2022, 31:

446-450.

- [5] Remy J, Voisin C, Dupuis C, et al. Treatment of hemoptysis by embolization of the systemic circulation[J]. Ann Radiol (Paris), 1974, 17:5-16.
- [6] Panda A, Bhalla AS, Goyal A. Bronchial artery embolization in hemoptysis: a systematic review[J]. Diagn Interv Radiol, 2017, 23: 307-317.
- [7] Saiga A, Sugiura T, Higashide T, et al. Multiple enlarged aneurysms in primary racemose hemangioma of the bronchial artery: successful prophylactic transcatheter arterial embolization using n-butyl-2-cyanoacrylate and coils [J]. Cardiovasc Intervent Radiol, 2018, 41: 811-815.
- [8] Hashimoto Y, Kasai H, Sugiura T, et al. Successful transcatheter arterial embolization in an asymptomatic patient with primary racemose hemangioma of the bronchial artery[J]. Respir Med Case Rep, 2020, 30:101060.
- [9] Pua U, Han Hwee Quek L, Dokev Basheer Ahmed A. Embolization of a bronchial artery-pulmonary artery arterio-venous malformation[J]. Ann Vasc Dis, 2019, 12:253-255.

(收稿日期:2023-06-27)

(本文编辑:谷 珂)

•病例报告 Case report•

经导管动脉栓塞联合手术治疗动脉瘤样骨囊肿 1 例

吴江涛, 苏庆道, 郑成松, 和夏芬, 周 舟

【关键词】 动脉瘤样骨囊肿; 股骨颈; 栓塞术

中图分类号:R681.5 文献标志码:D 文章编号:1008-794X(2024)-05-0579-02

Transcatheter arterial embolization followed by surgical resection for aneurysmal bone cyst: report of

one case WU Jiangtao, SU Qingdao, ZHENG Chengsong, HE Xiafen, ZHOU Zhou. Department of Radiology,

First Affiliated Hospital of Dali University, Dali, Yunnan Province 671000, China

Corresponding author: ZHOU Zhou, E-mail: 2469566653@qq.com (J Intervent Radiol, 2024, 33: 579-580)

【Key words】 aneurysmal bone cyst; femoral neck; embolization

1 临床资料

患者女, 29 岁, 自诉半年前外伤后右髋部疼痛, 呈酸胀疼痛, 无放射痛、跛行, 疼痛以活动时明显, 休息后稍缓解, 近 1 周加重。病程中患者一般情况良好, 既往体健。查体: 右髋部

软组织瘢痕, 愈合良好, 无红肿, 轻度压痛, 活动受限。实验室检查未见明显异常。骨盆 X 线前后位片示右股骨颈区不规则囊状低密度区, 其内未见明显骨小梁, 与周围分界清楚(图 1①); 髋关节 MRI 平扫示右股骨颈见囊性病变且分层, 大小

DOI:10.3969/j.issn.1008-794X.2024.05.022

基金项目: 云南省地方本科高校基金研究联合专项项目 (202001BA070001-047), 云南省教育厅科学研究基金 (2023Y1004)

作者单位: 671000 云南大理 大理大学第一附属医院放射科

通信作者: 周 舟 E-mail: 2469566653@qq.com