

· 临床经验 ·

血管内栓塞治疗异常体动脉供应正常左下肺基底段

虞栋 孙希文 揭冰 江森

异常体动脉(anomalous systemic artery, ASA)供应正常左下肺基底段为一罕见的先天性肺血管畸形。本病含义为起源于降主动脉的ASA供血部分或全部左下肺基底段,而受累肺组织的支气管树和肺实质正常;相应的肺动脉(pulmonary artery, PA)可缺如(完全型),也可存在(不完全型)^[1]。随着螺旋CT的应用普及,本病在近十年国内外报道明显增加,特别在东亚地区^[1-14]。本病在已往的文献报道中通常采用各种外科手术进行治疗。基于本病受累肺组织是正常的,微创的经导管动脉栓塞术(transcatheter arterial embolization, TAE)治疗ASA供应正常下肺基底段已有应用,但至今国内外仅6例个案报道^[6-11]。为此,笔者总结TAE治疗此畸形6例的临床疗效、并发症和治疗经验,并结合文献进行复习。

一、对象与方法

1. 对象:2008年3月至2011年2月在上海市肺科医院行TAE的6例ASA供应正常下肺基底段患者(包括2009年报道的1例)^[9],其中男3例,女3例;年龄16~46岁,平均27.7岁。6例均有咯血症状(4例反复少中量咯血,2例偶发少中量咯血;咯血量50~150 ml),1例合并胸闷气促,1例合并反复咳嗽。所有患者经多层螺旋CT血管造影(multi-slice CT angiography, MSCTA)证实,同时纤维支气管镜检查示受累部位的支气管正常。

2. 方法:围手术期用药:所有患者术前、术后2~3 d静脉内应用地塞米松10 mg/d。5例术前、术后静脉内应用广谱抗生素各1次;1例在栓塞术中直接在ASA间断灌注抗生素1次,术后静脉内用药1次。

血管造影术:经股静脉入路,用Pig管和(或)Cobra管(美国Cook和Cordis公司)行PA造影。用猪尾管行胸降主动脉造影,后用各型导管对ASA行选择性造影;3例经股动脉入路,3例经左侧桡动脉入路。造影用对比剂为含碘300 mg I/ml的碘海醇(安盛药业),设备为GE Advantx LCA+和PHILIPS Allura Xper FD 20/20血管造影仪,摄影帧频为6帧/s。

血管栓塞术:所有患者均行ASA主干栓塞,栓塞材料为直径为5~15 mm普通弹簧圈(美国Cook公司)和I型Amplazter血管塞(Amplazter vascular plug, AVP;美国AGA公司)。早期2例和后期1例(左手艾伦试验阳性)经股动脉入路用5 F西蒙管选择性弹簧圈栓塞ASA,2例经左侧桡动脉入路用4 F眼镜蛇管选择性弹簧圈栓塞ASA,1例经左侧桡动脉入路结合5 F眼镜蛇导管经6 F-90 cm长鞘选择性AVP栓塞ASA。

3. 随访和观察内容:随访由放射科医师通过电话联系和介入门诊复查完成;内容为TAE后原发症状改善和并发症发生情况。复查MSCTA观察栓塞效果,检查时间为术后1~3个月、3个月、6个月和1年,以后每年复查1次。随访时间6个月至3年。

二、结果

1. 血管造影表现:6例均为完全型。1支粗大的ASA起源于T8~9水平胸降主动脉左前侧壁,向下走行一段后弧形向上内并发出分支进入肺内(图1)。ASA供血全部下肺基底段3例,内、外、后基底段2例,外、后基底段1例。静脉期血流经增粗的肺静脉回流至左心房(图2),相应PA缺如(图3)。

2. 栓塞结果:5例单用弹簧圈者,分别在ASA主干内置入8~24枚各种不同规格的弹簧圈,呈巢状填塞ASA主干,至血流完全停滞完成栓塞术(图4~6)。1例单用AVP者,将AVP释放入ASA主干25 min后,AVP内血栓完全形成,至血流完全停滞完成栓塞术(图7,8)。栓塞效果均经复造影证实。

3. 临床疗效和并发症:所有患者在随访期间内以咯血为主的原发症状均消失,并未再复发。3例术后出现胸痛(均位于术侧),2例轻微胸痛1、2周,1例无规律性针刺样胸痛2周;均逐渐自行缓解、痊愈。复查CT可见ASA均有不同程度的变细,栓塞的ASA未见复通(图9,10);其中1例AVP近端侧部分塌陷,内仍见血栓充填(图11,12)。所有患者的受累异常的肺组织纹理恢复到正常水平,其中1例术后针刺样胸痛患者术后3个月可见胸膜下少许楔形样病灶(考虑小梗死灶)(图13,14)。

三、讨论

ASA供应正常下肺基底段早期由Pryce^[15]将其归于叶内型肺隔离症I型,因ASA供血的肺实质和相应的支气管树正常,本病与经典的肺隔离症有一定区别。本病命名尚未统一;目前有多种命名:如体动脉供应肺基底段,迷走体动脉供应左肺,无隔离的PA体循环化,体动脉供应正常左下肺基底段和动脉性肺隔离症等^[1-14]。本病绝大多数累及左肺,目前多数学者将其命名为“异常体动脉供应正常左下肺基底段”。目前有关ASA供应正常左下肺基底段的报道主要集中在日本、韩国和我国(包括台湾地区),因此有学者提出此病可能好发于亚洲人群^[5]。

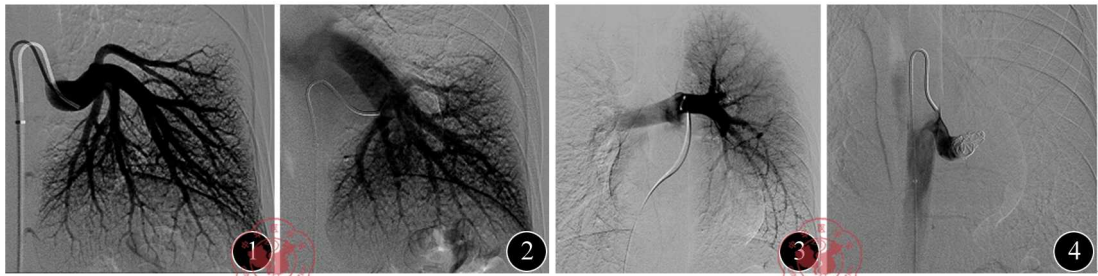


图1~4 患者男, 16岁, 偶发中量咯血。图1为经股动脉入路选择性ASA造影, 示粗大的ASA起源于胸降主动脉供血左下肺基底段。图2示静脉期血流经增粗的肺静脉回流至左心房。图3为PA造影, 示左下肺基底段PA缺如。图4为多枚弹簧圈栓塞ASA主干后, 血管闭塞



图5, 6 患者男, 19岁, 反复少量咯血、咳嗽。图5为经左桡动脉选择性ASA造影, 示粗大的ASA供血左下肺基底段。图6为多枚弹簧圈栓塞ASA主干后, 血管闭塞 图7, 8 患者女, 24岁, 反复少量咯血伴胸闷气促。图7为经左桡动脉选择性ASA造影, 示粗大的ASA供血左下肺基底段。图8为将一枚I型AVP放入ASA主干25 min后血管闭塞, AVP形态良好

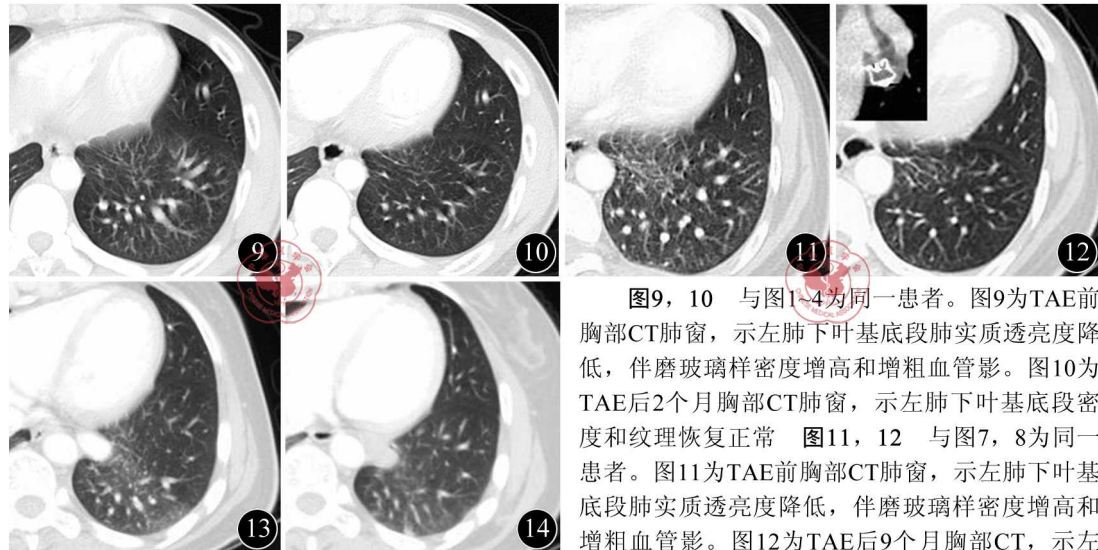


图9, 10 与图1~4为同一患者。图9为TAE前胸部CT肺窗, 示左肺下叶基底段肺实质透亮度降低, 伴磨玻璃样密度增高和增粗血管影。图10为TAE后2个月胸部CT肺窗, 示左肺下叶基底段密度和纹理恢复正常 图11, 12 与图7, 8为同一患者。图11为TAE前胸部CT肺窗, 示左肺下叶基底段肺实质透亮度降低, 伴磨玻璃样密度增高和增粗血管影。图12为TAE后9个月胸部CT, 示左肺下叶基底段密度和纹理恢复正常, 但AVP近端塌陷, 血栓仍充填 图13, 14 患者女, 46岁, 偶发中量咯血。图13为TAE前胸部CT肺窗, 示左肺下叶外后基底段肺实质透亮度降低, 伴磨玻璃样密度增高和增粗血管影。图14为TAE后3个月胸部CT, 示左肺下叶外后基底段密度和纹理恢复正常, 但胸膜下有少许楔形样病灶

本病的病理生理基础为左向左的分流, 体动脉供应的肺组织充血, 体循环的高压可增加肺血管床的压力和左心负荷, 同时也增加肺循环量和压力而增加右心负荷, 另外粗大的 ASA 和增粗的肺静脉可压迫相邻支气管致气道不完全阻塞。本病可无临床症状, 主要症状为偶发或反复咯血, 另外还可有反复呼吸道感染、呼吸困难、胸痛和肺动脉高压, 小儿患者可出现心前区不同级别连续性响亮粗糙的杂音和充血性心力衰竭表现^[1-14]。目前诊断本病最佳的无创性检查手段为 MSCTA^[2-4]。ASA 绝大多数起源于胸降主动脉, 也有个案报道可起源于腹腔干^[14]。根据受累部位的相应 PA 是否缺如, 分为完全型 (PA 缺如) 和不完全型 (PA 存在), 不完全型的 PA 通常较正常细^[1, 6, 14]。

目前对本病的治疗主要是外科手术,包括肺叶切除、基底段切除术、血管结扎术和血管吻合术,电视胸腔镜技术可应用于本病的外科治疗。外科手术除创伤大和遗留潜在的各种术后不良改变以外,部分术式有不同程度的缺陷。肺叶切除术会切除以背段为主的有正常功能的部分肺组织。基底段切除术手术难度和创伤较大。血管吻合术是将 ASA 和残留 PA 吻合,这样使受累肺组织重新获得正常循环,但成人的 ASA 因长期高压血流冲击,血管壁功能有不同程度受损,血管吻合后血流灌注不佳^[12-13]。Hirai 等^[12]认为此术可能只适用于小儿。血管内栓塞治疗相当于外科血管结扎术,但属微创。

1998 年由 Brühlmann 等^[6]首次应用 TAE 成功治疗 1 例不完全型 ASA 供血下肺基底段后,目前已有 6 例报道^[6-11](表 1,包括本组 1 例),结合本组其他 5 例,共计 11 例均取得满意的临床疗效,术后肺组织密度恢复正常,症状消失。TAE 治疗本病目的主要是纠正局部血流动力学以减轻高压 ASA 对肺血管床的压力,校正左-左分流以减轻心脏负荷,同时尽量减少对靶器官的影响。因此本病的 TAE 非栓塞性内脏切除,适用采取主干性栓塞。目前主干栓塞的栓塞物主要包括各种弹簧圈、可脱性球囊、血管封堵器和 AVP。弹簧圈输送导管要求不高,但多个弹簧圈行 ASA 的栓塞相对耗时,增加 X 线照射剂量,同时普通弹簧圈材质为不锈钢,没有 MR 相容性。可脱性球囊的输送系统直径较大,且在操作上较复杂,亦有球囊回缩致血管再通的问题。血管封堵器和 AVP 可用于本病的栓塞治疗,单次释放即可达到栓塞效果,且为可控性释放并有 MR 相容性;较血管封堵器,其输送系统直径相对较小,近几年已经广泛应用于外周和心脏介入治疗。II 型 AVP 较 I 型 AVP 有更强的血管贴壁力和更短的血栓形成时间,但目前 II 型 AVP 尚未进入国内市场。需注意的是,AVP 直径应该至少大于靶血管内径的 20%,最好 >30%。

表 1 已发表的成功应用 TAE 治疗异常体动脉供应正常左下肺基底段文献总结

作者(发表年)	序号	性别	年龄(岁)	临床症状	ASA 起源/供血	PA 情况	栓塞材料	随访时间	并发症
Brühlmann 等(1998) ^[6]	1	男	51	咯血	DTA/LLL	纤细	弹簧圈	10 个月	无
Saida 等(2006) ^[7]	2	女	41	咯血	DTA/LLL	缺如	弹簧圈	6 年	胸痛 1 个月
Lim 等(2009) ^[8]	3	男	26	咯血	DTA/LLL	缺如	弹簧圈	6 个月	无
江森等(2009) ^[9]	4	女	33	咯血	DTA/LLL	缺如	弹簧圈	6 个月	胸痛 2 周
Abe 等(2011) ^[10]	5	女	24	咯血	DTA/LLL	缺如	弹簧圈	1 年	胸痛 2 d
Canyigit 等(2011) ^[11]	6	男	53	胸痛	DTA/LLL	缺如	弹簧圈 + II 型 AVP	10 个月	短暂性肺梗死

注:ASA、PA、DTA 为异常体动脉、肺动脉和胸降主动脉;LLL 为左下肺;AVP 为 Amplatzer 血管塞

本病的 ASA 通常起源于胸降主动脉左前侧壁,呈大角度向下走行一段后弧形向上进入肺内,经股动脉选择性普通弹簧圈栓塞时,可根据血管走行选择 RLG 或 SIM 管行选择性栓塞术;而需要释放 AVP 时经股动脉入路输送系统进入 ASA 主干则非常困难。Canyigit 等^[11]切开右侧肱动脉后经此处入路成功放置 AVP。笔者经左侧桡动脉入路结合眼镜蛇管成功将 6 F-90 cm 长鞘导入 ASA 主干并释放 AVP 1 例,术后复查发现其 AVP 的近端塌陷,但血管并未复通。考虑到 I 型 AVP 在肺动静脉畸形的栓塞术有一定的再通率,一般 ASA 的主干较短,一旦再通时进行补充栓塞有较大困难。本组后 3 例仍采用选择性弹簧圈栓塞 ASA。经左侧桡动脉入路用眼镜蛇管选择性弹簧圈栓塞 ASA,导管头端可方便置于 ASA 的主干远端,栓塞方便,如有再通也有利于再次栓塞,前提是左手艾伦试验需阴性。当然如应用同轴微导管系统和 GDC 行栓塞则对入路要求不高,但此类弹簧圈价格昂贵。

结合文献和本组的 11 例,TAE 术后主要并发症为胸痛(6 例),均为完全型,其中 2 例为明确的短暂性肺梗死。本病 TAE 后发生胸痛症状与受累的肺组织肺梗死有关,也可能与栓塞后综合征有关。理论上不完全型的 PA 存在,栓塞 ASA 后受累肺组织尚有 PA 供血,一般不会发生严重的肺梗死;完全型的 PA 缺如,栓塞 ASA 后,受累肺组织失去血液供应,可能发生永久性肺梗死的并发症。结合文献报道的 6 例术后胸痛患者(2 例并明确肺梗死)均未发生严重并发症,均短期自愈。这可能与肺组织体循环侧支众多有关,如支气管动脉、肋间后动脉、膈下动脉和胸廓内动脉等等,这些血管可对受累的肺组织 TAE 后进行代偿性供血,不至于肺组织完全梗死。本组患者均接受术前激素和广谱抗生素,主要目的为预防和减少术后肺梗死、坏死性肺脓肿的发生。MSCTA 长期随访是必要的,可以观察 TAE 的效果,如有咯血复发则同时观察 ASA 是否再通或正常体循环侧支是否有代偿性扩张。

参 考 文 献

- [1] Yamanaka A, Hirai T, Fujimoto T, et al. Anomalous systemic arterial supply to normal basal segments of the left lower lobe. *Ann Thorac Surg*, 1999, 68:332-338.
- [2] 杨光钊, 赵顺标, 昆明, 等. 异常体动脉正常左下肺基底段的胸部 X 线片和螺旋 CT 表现. *中华放射学杂志*, 2006, 40:815-817.
- [3] 于红, 李惠民, 刘士远, 等. 动脉性肺隔离症的多层螺旋 CT 诊断. *中华放射学杂志*, 2010, 44:383-386.
- [4] Kim TS, Lee KS, Im JG, et al. Systemic arterial supply to the normal basal segments of the left lower lobe: radiographic and CT findings in 11 patients. *J Thorac Imaging*, 2002, 17:34-39.
- [5] Wu KA, Wu CP, Perng WC. Ethnicity relation to anomalous systemic arterial supply to normal basal segments of the left lower lobe. *Clin Imaging*,

2008, 32:477-479.

- [6] Brühlmann W, Weishaupt D, Goebel N, et al. Therapeutic embolization of a systemic arterialization of lung without sequestration. *Eur Radiol*, 1998, 8:355-358.
- [7] Saida T, Ninomiya H, Hojo F, et al. Systemic arterial supply to the normal basal segments of the left lower lobe treated by coil embolization, with long-term follow-up. *Radiat Med*, 2006, 24:365-368.
- [8] Lim HH, Huh JK, Kim JH, et al. Therapeutic embolization of systemic arterial supply to normal basal segments of the left lower lobe of the lung. *Respirology*, 2009, 14:606-608.
- [9] 江森, 朱晓华, 陈昶, 等. 经动脉弹簧圈栓塞治疗异常体动脉供应正常下肺基底段一例. *中华放射学杂志*, 2009, 43:319-321.
- [10] Abe T, Mori K, Shiigai M, et al. Systemic arterial supply to the normal basal segments of the left lower lobe of the lung: treatment by coil embolization and a literature review. *Cardiovasc Intervent Radiol*, 2011, 34:S117-121.
- [11] Canyigit M, Gumus M, Kilic E, et al. Aneurysm of an anomalous systemic artery supplying the normal basal segments of the left lower lobe: endovascular treatment with the amplatzer vascular plug II and coils. *Cardiovasc Intervent Radiol*, 2011, 34:S126-130.
- [12] Hirai T, Ohtake Y, Mutoh S, et al. Anomalous systemic arterial supply to normal basal segments of the left lower lobe: a report of two cases. *Chest*, 1996, 109:286-289.
- [13] Hessel EA, Boyden EA, Stamm SJ, et al. High systemic origin of the sole artery to the basal segments of the left lung: findings, surgical treatment, and embryologic interpretation. *Surgery*, 1970, 67:624-632.
- [14] Irodi A, Cherian R, Keshava SN, et al. Dual arterial supply to normal lung: within the sequestration spectrum. *Br J Radiol*, 2010, 83:e86-89.
- [15] Pryce DM. Lower accessory pulmonary artery with intralobar sequestration of the lung: a report of seven cases. *J Pathol Bacteriol*, 1946, 58:457-467.

(收稿日期:2011-08-24)

(本文编辑:吴莹)

虞栋, 孙希文, 揭冰, 等. 血管内栓塞治疗异常体动脉供应正常左下肺基底段[J/CD]. *中华临床医师杂志:电子版*, 2011, 5(24):7413-7416.