

· 论 著 ·

8 例儿童先天性冠状动脉瘘的介入治疗

李 溢, 易岂建, 陈 勇, 田 杰, 吕铁伟, 蒲晓芳, 陈 沅, 白永虹

(重庆医科大学附属儿童医院心脏中心 400014)

摘要:目的 总结先天性冠状动脉瘘(CAF)的临床特征及介入治疗效果,探讨经导管介入治疗 CAF 的方法及治疗原则。**方法** 2006~2011 年在该中心行心导管介入治疗 8 例先天性 CAF 患儿,对患儿的临床表现、CAF 类型及其介入治疗路入途径、堵闭器类型、堵闭效果及随访进行回顾性分析。**结果** 8 例患儿均成功封堵,术后随访 6 个月至 5 年,无残余分流及其他并发症。**结论** 经导管介入治疗先天性 CAF 安全、有效,应严格掌握手术适应证。

关键词: 冠状动脉瘘;先天性心脏病;介入

doi:10.3969/j.issn.1671-8348.2013.31.005

文献标识码:A

文章编号:1671-8348(2013)31-3735-03

Transcatheter therapy in 8 cases of children with congenital coronary artery fistula

Li Mi, Yi Qijian, Chen Yong, Tian Jie, Lv Tiewei, Pu Xiaofang, Chen Yuan, Bai Yonghong

(Heart Center of Children's Hospital Chongqing Medical University, Chongqing 400014, China)

Abstract: Objective To summarize clinical features and intervention therapeutic effect of congenital coronary artery fistulas (CAF), and to explore the method and therapeutic principle of transcatheter closure therapy. **Methods** 8 children in heart center of Children's Hospital Affiliated to Chongqing Medical University from 2006 to 2011 were conducted with transcatheter therapy, the including clinic feature, the type of CAF, the type of occluder were analyzed retrospectively. **Results** Transcatheter closure of all cases were successful. No residual shunt and other complications occurred, during the follow-up period of 6 months to 5 years. **Conclusion** Transcatheter closure treatment is a safe and effective method for congenital CAF.

Key words: coronary artery fistula; congenital heart disease; transcatheter intervention

冠状动脉瘘(CAF)是一类比较罕见的先天性畸形,主要表现为冠状动脉主干或(和)其分支与某一心腔或大血管间存在异常交通,约占先天性心脏病的 0.3%^[1-2]。本院在 2006~2011 年通过心导管介入治疗 8 例先天性 CAF 患儿,现报道如下。

1 资料与方法

1.1 一般资料 全部病例均来自 2006~2011 年本院介入治疗的 8 例 CAF 患儿,其中男 4 例,女 4 例;年龄 2 岁零 1 个月至 9 岁,平均(4.1±2.1)岁;体质量 10.5~23 kg,平均(14.8±6.2)kg。1 例患儿因胸闷、气促就诊,门诊疑诊“心肌炎”,后经超声心动图检查发现;1 例患儿因反复肺炎,基层医院听诊发现杂音,经超声诊断发现;其余 6 例均无明显症状,体检时发现心脏杂音后经超声诊断。

1.2 诊断 全部病例均在术前采用经胸超声心动图诊断。根据术前心脏超声检查结果选择性地行升主动脉造影、选择性冠状动脉造影观察主动脉的各部分和左右冠状动脉的行走及分支以及 CAF 的起始、瘘动脉行走方向以及瘘口部位等。经心导管检查证实:右冠状动脉右室瘘 5 例,右冠状动脉右房瘘 1 例,左冠状动脉右房瘘 1 例,左冠状动脉右室瘘 1 例。

1.3 介入治疗 所有病例完善相关术前检查,尤其注意经 12 导联心电图检测,观察 ST 段及 T 波,以便试封堵时对照。在静脉复合麻醉神经阻滞麻醉下,穿刺右侧股动脉和股静脉。按照先天性心脏病介入治疗常规进行手术。全身肝素化(100 U/kg),分别置入 5F 动脉鞘和 6F 静脉鞘,行左右心导管检查,测定上腔静脉、下腔静脉、右心房、右心室、肺动脉、主动脉及左

心室的压力和血氧饱和度,并计算左右心排血量、左向右的分流量(Qp/Qs)和肺血管的阻力等指标。根据造影等各项检查结果,采用由动脉系统送入输送长鞘及堵闭器堵闭法和经静脉系统逆行送入输送长鞘及堵闭器堵闭法。本研究中 5 例患儿建立股动脉-冠状动脉-瘘口-股静脉的输送轨道,3 例患儿采用经股动脉-冠状动脉-瘘口进行堵闭。将堵闭器输送到瘘口处试封堵,封堵成功后观察心电图变化 15~30 min,若无 ST-T 改变,听诊心脏杂音消失,重复冠状动脉造影证实封堵完全,无残余分流后释放封堵器。术后口服肠溶阿司匹林 2~3 mg·kg⁻¹·d⁻¹半年,常规心脏彩超、心电图 1 个月、3 个月、6 个月、1 年及以后每年 1 次随访。

2 结 果

8 例患儿均封堵成功,成功率 100%。其中 5 例选用对称型室间隔堵闭器,2 例采用动脉导管未闭蘑菇伞堵闭器,1 例采用 cook 弹簧圈堵闭器。2 例患儿试封堵时出现心电图 ST 段改变,将堵闭器收回,重新调整位置再观察 15~30 min,心电图与术前一致后释放堵闭器。见表 1。

2.1 术后即刻 8 例患者术后即刻心脏杂音消失。术后即刻行超声心动图和心导管造影;8 例患儿中 6 例未见残余分流,2 例仅见少量残余分流;1 例提示三尖瓣中度返流。典型病例:患儿,男,4 岁,因发现心脏杂音 4 d 入院,彩超提示右冠状动脉右室瘘,行心导管造影及介入治疗。见图 1~4。

2.2 随访 术后持续心电图监测 24 h,复查心肌酶及肌钙蛋白均正常。术后 24~48 h 心脏超声复查仅 1 例患者少许残余分流,该患儿术后 3 个月再次复查心脏超声,残余分流消失。1

例提示三尖瓣中度返流,术后 1 个月彩超提示三尖瓣轻度返流。术后 24、48 h,1、3、6、12 个月复查心电图无改变。随访观

察 6 个月至 5 年,患儿无特殊不适,生长发育正常。



图 1 升主动脉造影



图 2 选择性右冠状动脉造影



图 3 封堵后再次冠状动脉造影

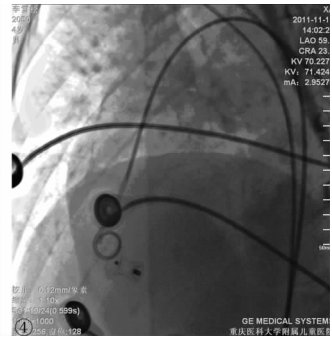


图 4 封堵器释放后

表 1 8 例冠状动脉瘘基本情况

序号	性别	年龄	症状或体征	冠脉瘘类型	Qp/Qs	入路途径	封堵器类型	封堵器型号
1	女	9 岁	胸闷、气促	左冠状动脉右房瘘	1.22	股静脉途径	对称型 VSD	6 mm
2	女	2 岁零 9 个月	心脏杂音	右冠状动脉右室瘘	1.17	股动脉途径	Cook 弹簧圈	5 mm×3
3	男	2 岁零 1 个月	反复肺炎	右冠状动脉右室瘘	1.31	股静脉途径	对称型 VSD	5 mm
4	女	3 岁零 7 个月	心脏杂音	右冠状动脉右室瘘	1.33	股静脉途径	对称型 VSD	6 mm
5	男	4 岁	心脏杂音	右冠状动脉右室瘘	1.47	股静脉途径	PDA 封堵器	6/8 mm
6	男	3 岁零 5 个月	心脏杂音	右冠状动脉右室瘘	1.5	股动脉途径	对称型 VSD	8 mm
7	男	5 岁零 2 个月	心脏杂音	左冠状动脉右室瘘	1.35	股动脉途径	PDA 封堵器	6/8 mm
8	女	3 岁零 1 个月	心脏杂音	右冠状动脉右房瘘	1.42	股静脉途径	对称型 VSD	6 mm

3 讨论

3.1 诊断方法 CAF 可根据病史、心前区连续性杂音、收缩期震颤等得到初步诊断^[3]。超声心动图成为目前公认的临床诊断 CAF 的主要方法之一。经胸超声心动图价格低廉、无创、可重复检查,二维和多普勒超声结合诊断 CAF 准确率高,可作为诊断 CAF 的首选方法^[4-5]。赵广明^[5]详细描述了 CAF 的超声表现。CAF 的彩色多普勒超声心动图图像特征及规律性明显:(1)二维超声心动图显示瘘的一支冠状动脉明显扩张。(2)无论哪支 CAF 至哪个心腔均显示左房、左室和主动脉根部内径增大,这是因为冠状动脉的分流属于动脉系统分流,无论瘘到哪个心腔均使左心系统容量增加所致。(3)彩色多普勒血流像在瘘的心腔或肺动脉内显示异常血流束信号。(4)异常血流束起始部宽度相当于瘘口直径。Liang 等^[6]认为:超声心动图检查不仅能明确 CAF 的起源、异常冠状动脉的扩张程度、瘘口的内径及其注入的心腔或大血管、分流量大小等,而对了解相关心腔的扩大程度、心室功能状况,以及有无合并肺动脉高压和其他心血管畸形等具有重要的诊断价值。选择性冠状动脉造影是诊断 CAF 的金标准,可动态观察 CAF 瘘口处造影剂的喷射征象,并可同步行介入治疗^[3,7-8]。但选择性冠状动脉造影属有创检查,须多次注射造影剂多体位造影,需住院检查,费用较高。选择性冠状动脉造影或逆行升主动脉造影,不仅能明确诊断,更重要的是可以显示受累的冠状动脉、瘘引流的部位和瘘口的位置和瘘管近心端的冠状动脉分支的分布情况,对分流较小、多发瘘道病变,选择性冠状动脉造影检查更是十分必要^[7-8]。本组病例均在超声心动图发现后,经选择性冠状动脉

造影证实并行同步治疗,作者认为造影投射角度非常重要,需明确冠脉走形、瘘口位置、瘘口数量、瘘口周围有无正常冠脉分支等,以便为后续介入或外科手术治疗提供资料。

3.2 介入治疗病例的选择 目前认为,即使患者无任何临床表现,也应该早期诊断,早期行根治性治疗。既往 CAF 均采用外科手术修复,随着心导管技术的不断发展,各种材料封堵 CAF 的报道逐渐增多。适应证:(1)有明显外科手术适应证的先天性 CAF,不合并其他需要手术矫正的心脏畸形;(2)外伤性或冠脉介入治疗所致医源性 CAF;(3)易安全到达、能够清晰显影的瘘管;(4)非多发的 CAF 开口、单发 CAF 进行介入治疗效果较好;(5)冠状动脉瘘口狭窄、瘘道瘤样扩张;(6)少数情况下,冠状动脉一支或多支形成与心腔相连的多发的微小血管网,可用带膜支架进行。封堵禁忌证:(1)要栓塞的冠状动脉分支远端有侧支发出,该处心肌组织供血正常;(2)受累的冠状动脉血管极度迂曲;(3)右心导管提示右向左分流,重度肺动脉高压。Jama 等^[9]认为多个瘘口的 CAF 是禁忌证。随着介入诊疗技术不断提高及介入材料学的改进,CAF 介入治疗适应证不断增加。本组病例均为单发瘘口。

3.3 路径选择 经动脉直接封堵:对瘘道较短的 CAF 可直接将导管送至瘘管最窄处的最末端用封堵器进行封堵,同时做对侧股动脉插管送入第二根导管至主动脉根部或冠状动脉内造影,观察封堵后的分流情况。经静脉途径逆行封堵法:用于冠状动脉瘘的异常曲折盘绕血管,管道途径较长,从动脉侧难以封堵瘘口开口于右心房者,采用建立动静脉轨道法逆行封堵。手术时需建立股动脉-升主动脉-冠状动脉-瘘口-右房(或右

室)。腔静脉的导引钢丝轨道,选择相应大小动脉导管未闭堵闭器由静脉系统或动脉系统递送至冠状动脉进行释放^[9]。本组病例有 5 例采用经静脉法,3 例采用经动脉法。作者认为如果冠状动脉明显增粗且冠状动脉较直,可采用直接经股动脉送入输送鞘管植入堵闭器。如果患儿年龄小或冠状动脉明显迂曲,需建立股动脉-冠脉瘘-股静脉轨道,经股静脉送入输送鞘管,植入堵闭器,此方法虽然较股动脉法相比较繁琐,但对股动脉及冠状动脉影响较小。此方法的另一优点在于:可以在建立轨道时将导丝暂不撤出,便于试封堵时调整位置,待试封堵完毕,再次造影显示封堵效果满意,释放堵闭器前才撤出导丝。本组病例有 5 例患儿采用此方法,效果良好。

3.4 堵闭位置选择 术中需行多角度冠脉造影确定将要封堵的位置,明确正常冠状动脉分支位置,清楚显示瘘口,要将堵闭器放在 CAF 的远端,以不影响冠状动脉的正常分支为原则。如果有最窄处,应将堵闭器放在 CAF 的最窄处;如果没有最窄处,应将堵闭器尽量释放至接近瘘口而远离正常冠状动脉分支^[8-9]。

3.5 封堵器的选择 目前临床经导管堵闭 CAF 的材料主要有 cook 弹簧圈、Amplatzer 型动脉导管未闭蘑菇伞堵闭器、Plug 异常血管堵闭器和对称型膜周部室间隔缺损堵闭器等。弹簧圈主要用于较小的 CAF,优点是输送导管管径较小,可直接经股动脉输送,对血管损伤小,操作相对简单,缺点是对粗大的 CAF 堵闭不完全或不可靠;Amplatzer 型动脉导管未闭蘑菇伞堵闭器、Plug 异常血管堵闭器和对称型膜周部室间隔缺损堵闭器主要用于较粗大的 CAF,优点是可控性好,但通常需要经股静脉途径置入,可根据瘘口形态选择 PDA 或 VSD 堵闭器。选用堵闭器的直径应大于瘘管最狭窄处 120% 以上^[10-12]。本组 8 例患儿 1 例选弹簧圈、2 例选 PDA 堵闭器、5 例选对称型 VSD 堵闭器全部堵闭成功,无残余分流,未发生堵闭器移位或脱落。

3.6 术中术后注意事项 术前需充分肝素化,以防术中冠状动脉血栓形成。术中选择封堵位置必须是正常冠脉分支后方,试封堵时需密切关注心电图变化,若发现心律失常尤其出现室性心动过速,应立即收回堵闭器。试封堵后至少观察 15~30 min,确定心电图无变化,再次造影证实堵闭器位置良好,其后无正常冠脉发出,无明显残余分流方可释放^[13]。封堵手术完成后需继续应用肝素治疗 2~3 d,为防止血栓堆积于堵闭器近端冠状动脉内造成冠状动脉分支闭塞而出现心肌梗死,尚需要口服抗凝药物治疗 2~3 周。

经导管封堵 CAF 是一种创伤性小、安全性高、临床疗效确切的方法,但必须严格掌握介入治疗的适应证,对于欲封堵的瘘管附近存在正常的冠状动脉分支血管,瘘管扭曲严重、出口多,经导管封堵有困难的病例可选择外科手术治疗^[14-15]。

参考文献:

[1] Luo L, Kebede S, Wu S, et al. Coronary artery fistulae [J]. *Am J Med Sci*, 2006, 332(1): 79-84.

- [2] Said SA, van der Werf T. Dutch survey of coronary artery fistulas in adults: congenital solitary fistulas [J]. *Int J Cardiol*, 2006, 106(3): 323-332.
- [3] Shriki JE, Shinbane JS, Rashid MA, et al. Identifying, characterizing, and classifying congenital anomalies of the coronary arteries [J]. *Radiographics*, 2012, 32(2): 453-468.
- [4] Schamroth C. Coronary artery fistula [J]. *J Am Coll Cardiol*, 2009, 53(6): 523-525.
- [5] 赵广明. 彩色多普勒超声对冠状动脉瘘的诊断研究 [J]. *中华实用诊断与治疗杂志*, 2008, 22(11): 846-847.
- [6] Liang CD, Ko SF, Huang CF, et al. Echocardiographic evaluation of coronary artery fistula in pediatric patients [J]. *Pediatr Cardiol*, 2005, 26(6): 745-750.
- [7] Canga Y, Ozcan KS, Emre A, et al. Coronary artery fistula: review of 54 cases from single center experience [J]. *Cardiol J*, 2012, 19(3): 278-286.
- [8] Egea Serrano P, Fernandez RG, Menchero AG, et al. Coronary artery fistula documented by invasive and non-invasive image techniques [J]. *Eur Heart J*, 2009, 30(8): 939-940.
- [9] Jama A, Barsoum M, Bjarnason H, et al. Percutaneous closure of congenital coronary artery fistulae: results and angiographic follow-up [J]. *JACC Cardiovasc Interv*, 2011, 4(7): 814-821.
- [10] Xu L, Xu ZY, Jiang SL, et al. Transcatheter closure of coronary artery fistula in children [J]. *Chin Med J (Engl)*, 2010, 123(7): 822-826.
- [11] Kassaian SE, Alidoosti M, Sadeghian H, et al. Transcatheter closure of a coronary fistula with an amplatzer vascular plug: should a retrograde approach be standard [J]. *Tex Heart Inst J*, 2008, 35(1): 58-61.
- [12] Zhu XY, Zhang DZ, Han XM, et al. Transcatheter closure of congenital coronary artery fistulae: immediate and long-term follow-up results [J]. *Clin Cardiol*, 2009, 32(9): 506-512.
- [13] Gowda RM, Vasavada BC, Khan IA. Coronary artery fistulas: clinical and therapeutic considerations [J]. *Int J Cardiol*, 2006, 107(1): 7-10.
- [14] Said SA. Current characteristics of congenital coronary artery fistulas in adults: a decade of global experience [J]. *World J Cardiol*, 2011, 3(8): 267-277.
- [15] Harikrishnan S, Bimal F, Ajithkumar V, et al. Percutaneous treatment of congenital coronary arteriovenous fistulas [J]. *J Interv Cardiol*, 2011, 24(3): 208-215.