

DOI:10.12025/j.issn.1008-6358.2020.20192294

· 研究快报 ·

介入栓塞联合手术切除治疗儿童巨大头面部动静脉血管瘤的初步尝试

张 毅^{1△}, 廖煜君^{2△}, 赵 瑞¹, 郑继翠¹, 李 昊^{1*}

1. 复旦大学附属儿科医院神经外科, 上海 201102

2. 复旦大学附属华山医院神经外科, 上海 200040

〔摘要〕 目的: 尝试应用介入栓塞和手术切除联合方案治疗儿童巨大头面部动静脉血管瘤。方法: 选择复旦大学附属儿科医院 1 例经介入联合手术治疗的巨大头面部动静脉血管瘤患儿, 总结其相关诊疗经过及影像资料, 分析其诊治方案的可行性。结果: 成功切除患儿病灶, 术中出血可控, 术后伤口愈合良好, 皮瓣活力正常, 患儿容貌满意。结论: 介入栓塞联合手术切除可能是儿童头面部动静脉血管瘤安全有效的治疗方式, 合理的制定栓塞和手术方案是治疗成功的关键。

〔关键词〕 介入栓塞联合手术切除; 头面部动静脉血管瘤; 儿童

〔中图分类号〕 R 743 〔文献标志码〕 A

Clinical application of interventional embolization combined with surgical resection in treatment of pediatric head and face arteriovenous hemangioma

ZHANG Yi^{1△}, LIAO Yu-jun^{2△}, ZHAO Rui¹, ZHENG Ji-cui¹, LI Hao^{1*}

1. Department of Neurological Surgery, Children's Hospital of Fudan University, Shanghai 201102, China

2. Department of Neurological Surgery, Huashan Hospital, Fudan University, Shanghai 200040, China

〔Abstract〕 **Objective:** To apply combined interventional embolization and surgical resection to treat children with giant head and face arteriovenous hemangioma. **Methods:** A case of giant head and face arteriovenous hemangioma treated by interventional embolization combined with surgical resection was selected from the Children's Hospital of Fudan University. The related diagnosis and treatment process and image data were summarized to analyze the feasibility of its diagnosis and treatment plan. **Results:** The lesions were successfully removed, the intraoperative bleeding was controllable, the postoperative wound healed well, the flap vitality was normal, and the appearance of the child was satisfactory. **Conclusions:** Interventional embolization combined with surgical resection is a safe and effective treatment for pediatric head and facial arteriovenous hemangioma. Reasonable formulation of embolization and surgical plan is the key of successful treatment.

〔Key Words〕 interventional embolization combined with surgical resection; head and face arteriovenous hemangioma; pediatric

动静脉性血管瘤好发于头颈部, 表现为血管瘤合并动静脉瘘, 以肿块区可触及搏动和闻及杂音为特征。动静脉性血管瘤多为进展性, 位于头面部的病变可对儿童相应的生理功能、容貌带来巨大影响^[1]。本研究通过总结与分析 1 例较罕见的儿童巨大动静脉血管瘤的诊治经过, 探讨以介入联合手术切除的方案作为该疾病治疗方法的可行性。

1 资料与方法

1.1 一般资料 患儿, 女性, 12 岁, 因“右侧颞部渐

增大肿块伴杂音 8 年”入复旦大学附属儿科医院。患儿 5 年前于当地脑血管造影检查提示右侧动静脉血管瘤, 右侧颈外动脉供血, 合并动静脉瘘, 但因家庭原因未予治疗。观察 5 年后自觉肿块增大, 并伴杂音加重, 为进一步治疗就诊于复旦大学附属儿科医院。MRI 检查提示右侧头面部巨大动静脉血管瘤, 瘤体强化明显, 其内可见粗大的流空信号(图 1)。脑血管造影检查提示, 右侧颞部巨大动静脉血管瘤, 瘤内可见高流量动静脉瘘及杂乱扩张的引流静脉, 供血动脉包括右侧颈外动脉的颞浅、颞深、脑膜中分支及颌面

〔收稿日期〕 2019-12-17

〔接受日期〕 2019-12-24

〔基金项目〕 复旦大学附属儿科医院青年临床科学家计划(EK112520180302)。Supported by Young Clinical Scientists Program of Young Clinical Scientists Program of Children's Hospital of Fudan University (EK112520180302)。

〔作者简介〕 张 毅, 硕士, 主治医师。E-mail: zhangyi1220@163.com

廖煜君, 博士, 主治医师。E-mail: nsiaojujun@126.com

△ 共同第一作者(Co-first authors)。

* 通信作者(Corresponding author)。Tel: 021-64931113, E-mail: lihao7272@163.com

动脉,并可见右侧颈内、右侧椎动脉、左侧颈内及颈外动脉均有侧支向瘤内供血(图 2)。经科内讨论后采取介入栓塞联合手术切除的方法进行治疗。本研究经医院伦理委员会审核批准,患儿家属知情同意并签署知情同意书。

1.2 手术过程 脑血管造影及介入栓塞均于复旦大学附属儿科医院导管室完成。采用全身麻醉,经

右侧股动脉穿刺置入 5F 鞘。全脑血管造影结果提示颈外动脉颞浅、颞深及脑膜中分支为主要供血动脉。在导引导管辅助下,分别将微导管超选入脑膜中动脉及颞深动脉,使用 Onyx-18 胶栓塞颈外深部供血(脑膜中和颞深动脉),保留颈外浅部血供(颞浅动脉),共使用 Onyx-18 胶 3 mL(图 3)。

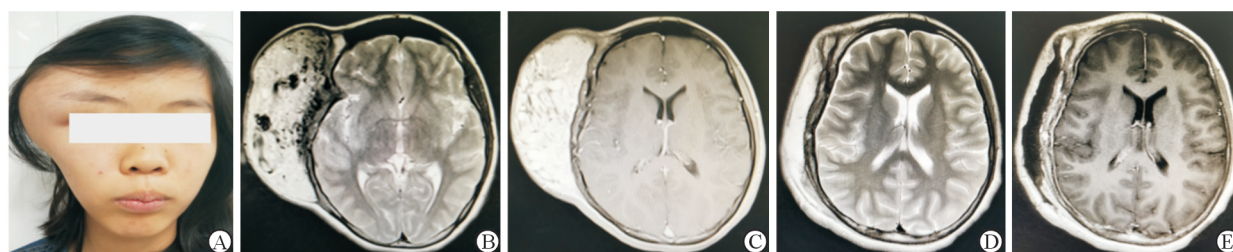


图 1 术前外貌及手术前后 MRI 检查

A:术前患儿正面照,可见右侧颞部巨大肿块并导致面部变形;B,D:术前(B)及术后 2 周(D)磁共振 T₂WI 图像;C,E:术前(C)及术后 2 周(E)磁共振 T₁WI 增强图像

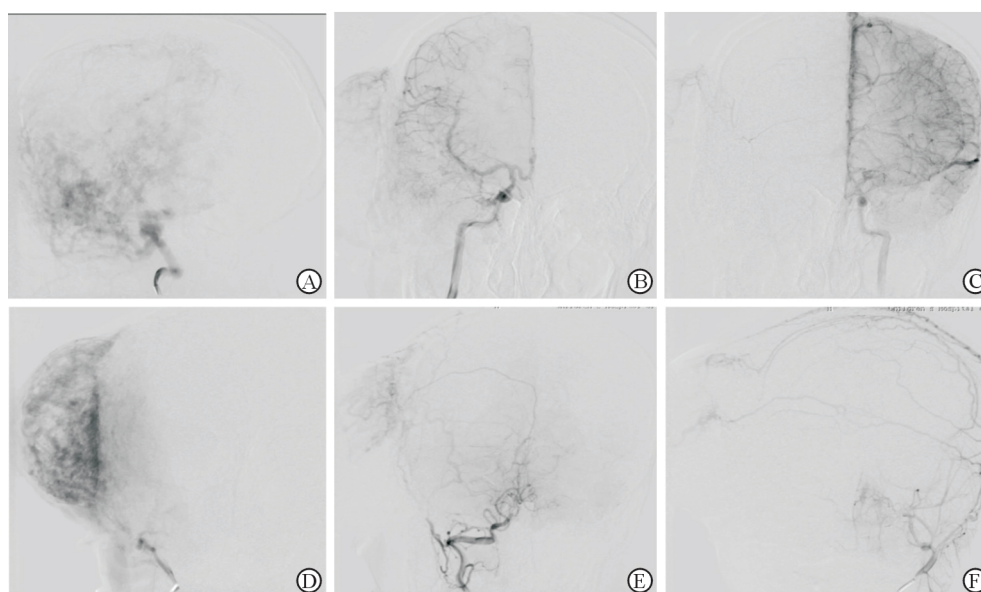


图 2 术前脑血管造影结果

A:颈外动脉造影侧位图,可见颈外动脉各分支供血的动静脉血管瘤;B:颈外动脉造影正位图,可见巨大流量的动静脉瘘,通过颈外静脉引流;C:右侧颈内动脉造影正位图,可见颈内动脉与瘤体形成侧支;D:右椎动脉造影正位图,可见侧支与瘤体沟通;E,F:左侧颈内(E)及颈外动脉(F)造影正位,可见侧支与瘤体沟通

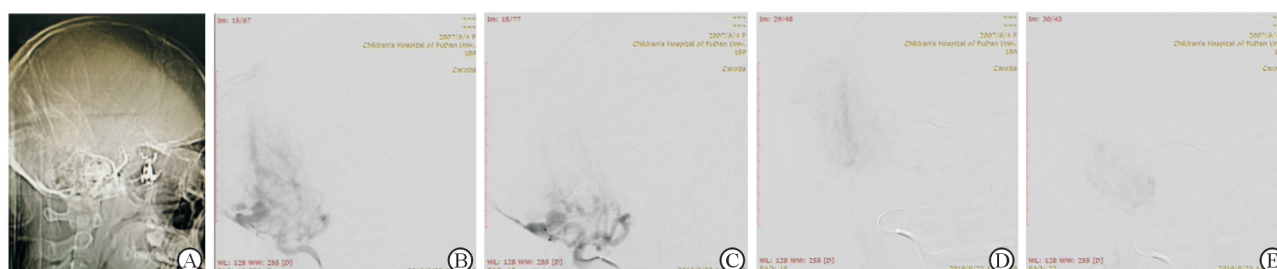


图 3 介入栓塞颈外动脉的脑膜中及颞深分支

A:介入栓塞术后 CT 检查,可见右侧颞深及脑膜中动脉内高密度栓塞剂;B,C:栓塞前(B)后(C)颈外动脉正位造影;D,E:脑膜中动脉(D)及颞深动脉(E)栓塞前经微导管造影

手术切除过程中,首先暴露颞浅动脉,阻断病灶供血后逐步将血管瘤自骨膜上剥离,直视下控制穿出颅骨的供血。术中可见血管瘤侵犯颞肌,将血管瘤及部分异常颞肌组织一并切除。

2 结 果

2.1 手术情况及病理 患儿造影及介入栓塞时长 2 h,切除手术时长 5 h,术中总出血量近 500 mL。

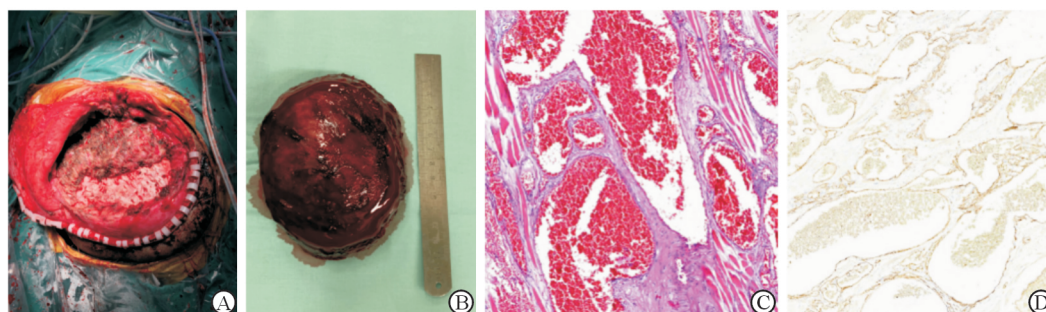


图 4 手术切除后创面及病理图片

A: 病灶切除后的创面,可见病灶侵犯颅骨及肌层;B: 病灶切下后测量,大小约 15 cm×10 cm;C: 苏木精-伊红(H-E)染色提示,病灶存在大小不等、厚薄不均的管腔结构;D: 免疫组化显示,血管壁结构内 CD34(+),提示存在血管内皮细胞。Original magnification: ×400(C,D)

3 讨 论

头面部动静脉血管瘤的处理在很大程度上取决于病变的血流动力学。在头部和颈部区域范围较大且存在较大血管通道的病灶对外科手术治疗有很大挑战,甚至会带来灾难性的后果^[2]。其治疗的根本理念是消除或部分消除病灶,常用的治疗措施包括硬化剂注射、血管内栓塞及手术治疗^[3]。

硬化疗法常采用 5% 鱼肝油酸钠、平阳霉素、无水乙醇和十二烷醇等,进行病灶内注射。硬化剂通过破坏血管内皮细胞,促进病变血液中蛋白质凝结形成栓子,促进血小板黏附,最终以血栓形成的机制引起血管闭塞^[4]。硬化疗法可以单独使用,也可以与手术等方法结合使用。范围较大的病灶常需多次治疗,但仍可因部分血管畸形组织残留而导致复发。上海交通大学附属第九人民医院用干扰素治愈 1 例合并动静脉瘘的头面部血管瘤新生儿病例^[5]。

高流量病灶,如动静脉瘘(AVF)或动静脉畸形(AVM),在术中有大量出血的风险,在切除前需要进行血管内栓塞^[6]。早期通过直接结扎颈外动脉来控制高流量,但已被证实无法治愈疾病。颈外动脉结扎使异常侧支循环大量开通,使病情复杂化,加

病理标本切面呈多房囊状或海绵样,内含暗红色血液,镜下可见大小不等、厚薄不均的管腔结构,考虑血管畸形伴血管瘤形成(图 4)。

2.2 患儿预后 术后磁共振图像见图 1。手术 5 d 后拔除负压引流管,无皮下积液,患儿皮肤及皮瓣活力正常,伤口愈合良好。术后 12 h 出重症监护室,术后 10 d 出院,患儿容貌改善明显,血管杂音消失。

剧疾病风险。因此,有效控制血流,缩小畸形团才是治疗的关键^[7]。目前,血管内栓塞术常用的材料包括乙醇、Onyx 胶、明胶海绵、微球及弹簧圈。四川省肿瘤医院报道了 56 例儿童头颈部血管瘤介入栓塞的治疗效果,其中 84% 的患儿可获得痊愈,但并未详细描述血管瘤的大小及是否存在复杂供血方式^[8]。

手术目前仍是上述方式的替代方案,通常用于难以治愈的病变^[9]。部分病灶尽管具有良好的边界,但手术中仍存在不可控出血的风险。此外,血管畸形向正常结构的扩展也给手术后恢复头面部的正常特征带来挑战^[10]。

本例患者 1 期手术切除存在不可控的出血风险,而介入栓塞颈外所有供血动脉,将导致颅内和深部的侧支开放,不仅无法治愈疾病,反而可使供血由颅外转向颅内。对于近 15 cm×10 cm 的巨大瘤体,硬化剂注射治疗周期长,治疗效果不明确;而且,高流量的动静脉瘘可能导致硬化剂进入心脏,从而造成致命性的肺循环损伤。本病例采用的治疗策略为选择性栓塞颞深动脉及脑膜中动脉等颈外动脉较深部的分支,而保留颞浅动脉供血,目的即为减少畸形团供血,同时避免颅内侧支过度开放。手术切除过程中首先暴露并阻断颞浅动脉,在

充分减少动脉血供的情况下较安全地切除肿瘤。

综上所述,使用介入栓塞联合手术切除对于儿童巨大头面部动静脉血管瘤安全有效,制定合理的栓塞和手术策略是治疗成功的关键。

参考文献

- [1] HOFF S R, RASTATTER J C, RICHTER G T. Head and neck vascular lesions[J]. Otolaryngol Clin North Am, 2015, 48(1):29-45.
- [2] NAIR S C, SPENCER N J, NAYAK K P, et al. Surgical management of vascular lesions of the head and neck: a review of 115 cases[J]. Int J Oral Maxillofac Surg, 2011, 40(6):577-583.
- [3] ZHENG J W, MAI H M, ZHANG L, et al. Guidelines for the treatment of head and neck venous malformations[J]. Int J Clin Exp Med, 2013, 6(5):377-389.
- [4] HEIT J J, DO H M, PRESTIGIACOMO C J, et al. Guidelines and parameters: percutaneous sclerotherapy for the treatment of head and neck venous and lymphatic malformations[J]. J Neurointerv Surg, 2017, 9(6):611-617.
- [5] ZHOU Q, YANG X J, ZHENG J W, et al. Hemangioma concurrent with arteriovenous malformation in oral and maxillofacial region: report of a case and review of the literature[J]. J Oral Maxillofac Surg, 2011, 69(4): 1100-1102.
- [6] GEMMETE J J, PANDEY A S, KASTEN S J, et al. Endovascular methods for the treatment of vascular anomalies[J]. Neuroimaging Clin N Am, 2013, 23(4):703-728.
- [7] CAHILL A M, NIJS E L. Pediatric vascular malformations: pathophysiology, diagnosis, and the role of interventional radiology[J]. Cardiovasc Intervent Radiol, 2011, 34(4): 691-704.
- [8] 程祝忠, 李迎春, 许国辉, 等. 动脉介入栓塞剂在儿童头颈部血管瘤栓塞治疗的表现及介入治疗中的意义[J]. 中华妇幼临床医学杂志(电子版), 2008, 4(5):48-51.
- [9] O T M, SCHEUERMANN-POLEY C, TAN M, et al. Distribution, clinical characteristics, and surgical treatment of lip infantile hemangiomas[J]. JAMA Facial Plast Surg, 2013, 15(4):292-304.
- [10] BUCKMILLER L M, MUNSON P D, DYAMENAHALLI U, et al. Propranolol for infantile hemangiomas: early experience at a tertiary vascular anomalies center[J]. Laryngoscope, 2010, 120(4):676-681.

[本文编辑] 姬静芳