

◁病例报告▷

胸主动脉夹层支架置入术后 5 年继发主动脉食管瘘 1 例

Secondary aortoesophageal fistula occurred 5 years after stent-graft placement in thoracic aortic dissection: report of one case

刘冰, 陈梦宇, 范丽娟(泰达国际心血管病医院, 天津 300457)

LIU Bing, CHEN Meng-yu, FAN Li-juan(TEDA International Cardiovascular Hospital, Tianjin 300457, China)

【关键词】 主动脉, 胸; 支架; 食管瘘; 体层摄影术, X 线计算机

【中图分类号】 R543.1; R814.42 【文献标识码】 B 【文章编号】 1008-1062(2024)04-0288-02

DOI:10.12117/jccmi.2024.04.014

病例 男, 64 岁, 因“发热半月, 发现胸主动脉支架内漏 8 天”入院。入院前半月无明显诱因出现发热, 体温最高 39℃, 于外院行抗感染、对症治疗。8 天前行胸主动脉 CT 血管成像(CTA)检查发现支架内漏, 患者近 5 日无再发热不适。既往高血压病史, 最高血压 180/100 mmHg(1 mmHg≈0.133 kPa), 血压控制不佳; 5 年前因主动脉夹层于外院行胸主动脉覆膜支架置入治疗。辅助检查: 白细胞计数 $4.4 \times 10^9 L^{-1}$, 中性粒细胞百分比 71.6%, 血红蛋白 81 g/L, C-反应蛋白 30.1 mg/L, D-二聚体 4.8 mg/L。

主动脉 CTA 检查(图 1~4): 主动脉弓-降主动脉支架置入, 支架周围软组织密度影增厚、积液、积气, 主动脉与食管之间脂肪界面消失, 纵隔脂肪间隙密度增高, 考虑胸主动脉支架感染并高度提示主动脉食管瘘(Aorto-esophageal fistula, AEF); 同时发现支架断裂、支架腔内附壁血栓; 支架远端 I 型内漏; 双侧少量胸腔积液。患者入院第 5 天再次出现发热, 并后背疼痛、痰中带血, 入院第 7 天下午突发大量呕血, 家属拒绝紧急主动脉支架置入手术, 随后再次出现大量呕血, 抢救无效死亡。

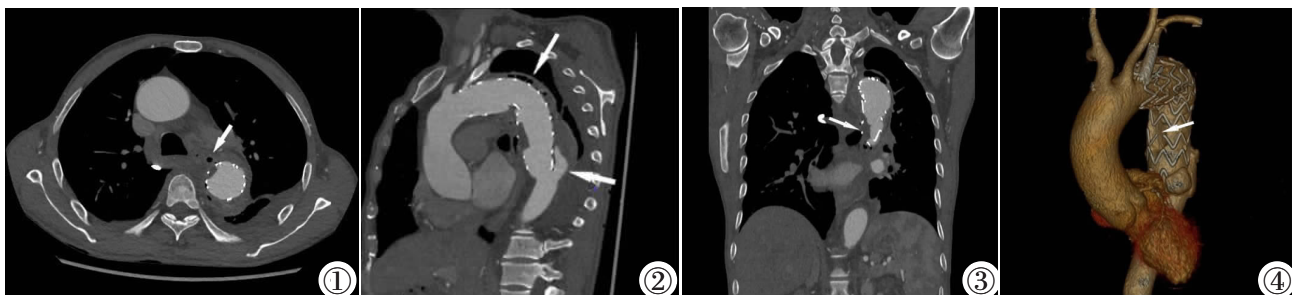


图 1 横轴位: 降主动脉周围异位气体、主动脉与食管脂肪间隙消失(箭头), 纵隔脂肪间隙密度增高。图 2 矢状位: 主动脉周围软组织影增厚、积液、积气, 支架远端 I 型内漏(箭头)。图 3 冠状位: 支架腔内附壁血栓(箭头), 此处与食管左后壁相邻, 两者之间脂肪间隙消失、分界不清。图 4 胸主动脉三维立体重建(VR), 支架腔内附壁血栓充盈缺损并相应水平支架断裂(箭头)。

讨论 AEF 十分罕见且危及生命, 死亡率极高, 早期诊断和及时治疗至关重要^[1], 发病率约 0.01%~0.08%^[2]。1818 年报道了第一例主动脉食管瘘, 直到 1980 年才首次治疗成功^[3]。AEF 分为原发性及继发性, 原发性见于主动脉瘤、吞食异物、胸部肿瘤放疗及外伤等, 继发性 AEF 相对多见, 主要见于主动脉或食管手术后并发症。

AEF 典型的临床表现为 Chiari 三联征, 包括中段胸痛、前哨性出血及无症状期后致命性大出血。本病例有胸主动脉支架置入史, 此次入院先是无明显诱因出现发热, 而后出现后背疼痛、前哨性出血, 继而出现大量呕血后死亡, 属于 Chiari 三联征典型的表现。前哨性出血与致命性大出血之间无症状间隔不可预测, 可以是数小时、数周甚至是数月^[4], 本病例二者间隔时间为 2 天。

AEF 常用的检查方法有消化内镜及 CT 检查。消化内镜常见的表现包括黏膜下肿瘤样突起、溃疡样病变和带中心瘘

管的搏动性突起, 甚至可以看到主动脉支架暴露^[5]。消化内镜属于侵入性检查, 操作不当容易引起大出血^[1]。CT 检查相对安全、快捷, 紧急情况下可作为诊断主动脉瘘的首选成像方式^[6]。推荐扫描动脉期及 80 s 延迟期以检测主动脉移植腔内渗漏^[7]。AEF 好发于食管中部三分之一处左后壁, 主要 CT 表现包括假性动脉瘤、主动脉周围软组织密度影增厚、积气及积液、主动脉与食管间脂肪界面消失, 罕见食管内少量对比剂渗入^[6,8], 该征象对于 AEF 的诊断至关重要, 因此 CT 检查不推荐口服对比剂, 以防掩盖少量渗入食管的对比剂^[9]。本例患者主动脉 CT 增强检查征象高度提示主动脉食管瘘, 临床医生考虑到此时内窥镜检查的风险较高, 因此放弃了内窥镜检查。

胸主动脉腔内修复术术后继发 AEF 的发生率在 0.5%~1.7%^[10], 首次手术和 AEF 症状出现的平均时间间隔为 59.5 月^[11], 本病例发生在胸主动脉夹层支架置入治疗后 5 年, 与文

【收稿日期】 2023-07-31; 【修回日期】 2023-08-10

【作者简介】 刘冰(1985-), 女, 河北邢台人, 副主任医师。E-mail: lanshangbing@163.com

【通信作者】 范丽娟, 泰达国际心血管病医院, 300457。E-mail: lijuanfan111@sina.com

献报道相符。主动脉支架引起 AEF 的可能原因有:支架的扩张压力造成主动脉压力性坏死、直接侵蚀食管;支架造成纵膈压力升高导致主动脉营养食管的血管分支闭塞,引起食管壁缺血坏死;支架感染蔓延至食管并侵蚀食管壁。其中支架感染是最大的危险因素^[12]。AEF 既是主动脉移植物感染(Aortic graft infection, AGI)的诱因也是 AGI 的并发症,两者可独立存在,也可并存。由于 AGI 罕见,诊断十分困难,因此 2016 年英国主动脉移植物感染管理协会在临床/手术、影像学表现及实验室检查三个方面提出 AGI 的主要及次要诊断标准^[13]。同时提出,仅符合 1 个主要标准或符合不同类别 2 个或以上次要标准时怀疑 AGI;若符合 1 个主要标准且符合其他类别任何 1 个主要标准或次要标准时可诊断为 AGI。本病例影像学表现符合 2 个主要标准且符合临床表现中的 1 个次要标准,因此可明确诊断 AGI。需要强调的是,术后 3 月内支架周围积液和 7 周内支架周围气体是正常术后改变,此时可利用 PET-CT 检查中 ¹⁸F-FDG 的摄取辅助诊断^[10]。综合上述 CT 表现并结合典型的 Chiari 三联征,本病例最终诊断为 AEF。

本病例降主动脉与食管中段左后壁相邻位置发现附壁血栓,通常此处极不易形成血栓,故针对该处进行 VR 重建发现该处主动脉支架发生了断裂,而恰恰该位置是 AEF 的好发部位,因此推断该患者 AEF 发生于此,加之主动脉支架断裂造成血流动力学异常从而形成较大的附壁血栓。笔者认为本病例发生 AEF 的诱因包括支架感染直接侵蚀食管壁、支架断裂对食管壁机械性损伤,二者结合导致 AEF。

主动脉支架置入术后合并主动脉食管瘘的患者因存在支架的隔绝发生致命性大出血的几率相对要低甚至不出血^[4],而本病例虽有主动脉支架置入史却最终死于大量呕血,这与该患者支架断裂失去隔绝作用有关。前哨性出血是少量或间歇性出血,最初出血造成低血压导致瘘管内形成血栓所致,此时血栓起到堵塞的作用,随着血栓反复移位、瘘管变大,当血压升高时,血栓从瘘管中排出,随后发生致命性大出血^[4]。本病例患有高血压且支架内血栓位置恰恰位于瘘管发生部位,因此考虑患者大量呕血可能与血栓脱落有关。

AEF 的治疗尚无定论,首先应紧急 TEVAR 止血,随后进行移植物置换和食管切除术,以获得长期良好的预后。术后应使用一段时间强效广谱抗生素以预防致命性脓毒症^[15]。

综上所述,AEF 是主动脉支架术后罕见并发症,病情凶险,死亡率高。前哨性出血是危及生命的警告信号并为诊断及治疗提供一个窗口期。本病例报道旨在提示影像科医生及临床医生认识 AEF 的 CT 表现,对于有主动脉支架置入史的患者出现无明显诱因的发热及相应 CT 表现时,要高度警惕 AEF 的发生并积极提前干预。

[参考文献]

[1]Kay MD, Davies B, Patel K, et al. Aorto-oesophageal fistula

- following TEVAR: an unusual cause of mediastinal air [J]. *BMJ Case Rep*, 2013, 2013: bcr2013009268.
- [2]Pirard L, Creemers E, Van Damme H, et al. In situ aortic allograft insertion to repair a primary aorto-esophageal fistula due to thoracic aortic aneurysm [J]. *J Vasc Surg*, 2005, 42 (6): 1213-1217.
- [3]Ctercteko G, Mok CK. Aorta-esophageal fistula induced by a foreign body: the first recorded survival [J]. *J Thorac Cardiovasc Surg*, 1980, 80(2): 233-235.
- [4]Fukunaga N, Matsueda T, Osumi M, et al. Unexpectedly large aorto-esophageal fistula inconsistent with CT imaging due to the thrombus working as the tamponade [J]. *J Cardiol*, 2009, 54(3): 466-469.
- [5]Chiba D, Hanabata N, Araki Y, et al. Aorto-esophageal fistula after thoracic endovascular aortic repair diagnosed and followed with endoscopy[J]. *Intern Med*, 2013, 52(4): 451-455.
- [6]Sipe A, McWilliams SR, Saling L, et al. The red connection: a review of aortic and arterial fistulae with an emphasis on CT findings[J]. *Emerg Radiol*, 2017, 24(1): 73-80.
- [7]Vu QD, Menias CO, Bhalla S, et al. Aortoenteric fistulas: CT features and potential mimics[J]. *Radiographics*, 2009, 29(1): 197-209.
- [8]Low RN, Wall SD, Jeffrey RB, et al. Aortoenteric fistula and perigraft infection: Evaluation with CT [J]. *Radiology*, 1990, 175 (1): 157-162.
- [9]Gulati A, Kapoor H, Donuru A, et al. Aortic Fistulas: Pathophysiologic Features, Imaging Findings, and Diagnostic Pitfalls[J]. *Radiographics*, 2021, 41(5): 1335-1351.
- [10]Lee SH, Song PS, Kim WS, et al. A case of stent graft infection coupled with aorto-esophageal fistula following thoracic endovascular aortic repair in a complex patient [J]. *Korean Circ J*, 2012, 42(5): 366-368.
- [11]Leon LR Jr, Mills JL Sr, Psalms SB, et al. Aortic paraprosthesis-colonic fistula: a review of the literature[J]. *Eur J Vasc Endovasc Surg*, 2007, 34(6): 682-692.
- [12]Uno K, Koike T, Takahashi S, et al. Management of aorto-esophageal fistula secondary after thoracic endovascular aortic repair: a review of literature [J]. *Clin J Gastroenterol*, 2017, 10 (5): 393-402.
- [13]Lyons OT, Baguneid M, Barwick TD, et al. Diagnosis of Aortic Graft Infection: A Case Definition by the Management of Aortic Graft Infection Collaboration (MAGIC)[J]. *Eur J Vasc Endovasc Surg*, 2016, 52(6): 758-763.
- [14]彭明亮,张道琴,杨呈伟,等. 多层螺旋 CT 血管成像在主动脉支架置入术后主动脉食管瘘中的诊断价值 [J]. *心肺血管病杂志*, 2021, 40(2): 175-179.
- [15]Takeno S, Ishii H, Nanashima A, et al. Aorto-esophageal fistula: review of trends in the last decade[J]. *Surg Today*, 2020, 50(12): 1551-1559.