

主动脉食管瘘致上消化道大出血 1 例并文献复习

赵熠* 杨雪

宜昌市夷陵医院消化内科,湖北宜昌 443100

关键词 主动脉;食管;大出血

中图分类号 R573.2 **文献标识码** A **DOI** 10.11768/nkjwzzzz20220220

急性上消化道大出血是临床上最常见的急危重症之一,常见于消化性溃疡、食管胃底静脉曲张破裂、急性糜烂性出血性胃炎以及胃癌等疾病。主动脉食管瘘(aortoesophageal fistula, AEF)是引起上消化道大出血的罕见原因,是食管、胸主动脉病理改变导致的胸主动脉与食管贯通而呈现的临床大出血,由法国 Dulreuil 于 1818 年首次报告^[1],患者生前确诊困难,大多数患者直至手术甚至尸检才能明确诊断,预后凶险。本文报道 1 例主动脉食管瘘患者并复习相关文献。

临床资料

患者男,50 岁,因“黑便 1 周,呕血、晕厥 1 次”入院。患者 1 周前无明显诱因黑便 4 次,量不详,伴头昏、乏力、上腹部隐痛,未重视;入院当日下午再次出现黑便并晕厥 1 次,伴短暂意识丧失,并四肢厥冷、大汗、头昏、乏力、心慌,就诊于宜昌市夷陵医院消化内科,途中呕鲜血 1 次,量约 50 mL,平车入我科。患者既往高血压病史 5 年,最高血压“180/120 mmHg”,予“比索洛尔”降压治疗,未监测血压;有“胃病史”1 年,间断予“胃药”口服,症状尚好;否认既往其他特殊病史。入院查体: T 36.6℃, P 122 次/min, R 19 次/min, BP 81/47 mmHg。神志清楚,重度贫血貌,皮肤湿冷,无肝掌及蜘蛛痣, HR 122 次/min,心肺听诊未闻及明显异常,腹平软,无压痛及反跳痛,肝脾肋下未触及,腹部未触及包块,双下肢无水肿。入院后急查血常规 Hb 76.2 g/L, RBC $2.37 \times 10^{12}/L$, WBC $8.96 \times 10^9/L$, PLT $132 \times 10^9/L$;急诊床边彩超:肝脾未见异常。入院后予止血、抑酸、补液、升压、输血等治疗,患者生命体征逐渐稳定,未见活动性消化道出血。为明确诊断,常规准备后于入院后第三天上午行内镜检查,当进镜至食管中上段处时,见食管内似一黏膜样小隆起,见图 1,表面窥视欠清,正谨慎观察时突然鲜血从隆起处大量涌出,快速退镜,随即呕吐出大量鲜血,出血量约 1 000 mL。患

者逐渐出现意识模糊,血压测不出、脉快而弱,于内镜室就地补液、止血、吸氧、输血等处理,转 ICU 抢救 5 h 后死亡。

尸检报告:距门齿 25 cm 处食管右前壁见大小约 4.5×3.5 cm 破口,边缘不整,与主动脉贯通,该处主动脉局部向食管侧呈帽状膨出;主动脉内膜广泛粥样斑块,可见钙化及溃疡,见图 2。显微镜下见食管破口周围黏膜坏死、脱落,肌层片状坏死;主动脉中膜弹力膜排列紊乱,大量中性粒细胞聚集形成小脓肿。病理诊断为主动脉食管瘘。



图 1 内镜检查所见

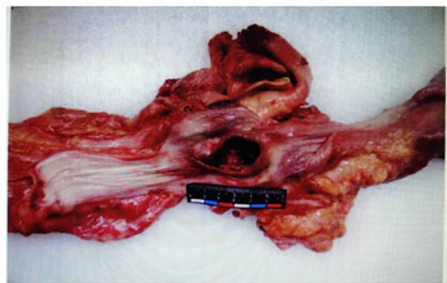


图 2 尸检见主动脉破口

讨论

本例患者 1 周内以反复上消化道出血为首发症状,最终因大出血而死亡,尸检得以确诊为主动脉食管瘘。

* 通信作者:赵熠, E-mail: 53914428@qq.com, 湖北省宜昌市夷陵区东湖大道 31 号

AEF 的发生与食管和胸主动脉的解剖结构密切相关,食管在经过左主支气管后方与其交叉处有胸主动脉越过,该处即食管第二狭窄,是异物滞留和食管癌的好发部位,也是 AEF 的好发部位^[2]。该狭窄处的食管异物、肿瘤、炎症等可直接累及主动脉或由此形成慢性病变,主动脉搏动、食物吞咽、咳嗽或屏气等因素均可促使上述病灶的贯穿。此外,该处主动脉壁如感染或粥样硬化等改变,可形成局限性动脉夹层、动脉瘤或假性动脉瘤,加上粥样硬化的血管壁弹性减弱、血管对食管的压迫,可导致食管壁缺血坏死,最终贯通形成主动脉食管瘘^[3]。另外,食管癌支架植入术、主动脉支架植入术后由于支架对食管壁或动脉壁的刺激、压迫,也可形成 AEF^[3,4]。本例尸检未发现食管异物、溃疡、炎症、肿瘤等,亦未曾植入支架,但发现主动脉粥样硬化、食管第二狭窄处主动脉瘤。因此,该患者的主动脉粥样硬化、主动脉瘤可能是其主动脉食管瘘的主要原因,而既往高血压可能是其促发因素。

AEF 的典型临床表现为 Chair 三联征,即胸骨后疼痛、信号(前哨性)出血、间歇期后致命性大出血^[5]。患者胸骨后疼痛可能是动脉、食管病变的扩大或贯通引起的症状;患者初次出血即所谓“信号出血”可表现为少量黑便,由于动脉收缩、血块堵塞破口等原因,出血可自行停止,绝大多数患者具有该特点;随着破口处血凝块溶解、移动、继发感染等因素,破口处最终可发生致命性大出血,表现为大量鲜血呕出,但也有部分患者可能在初次出血时即为致命性大出血。该患者胸骨后疼痛症状缺如,入院前 1 周的黑便症状即为“信号出血”,该患者最终可能由于行内镜检查时诱发了致命性大出血,终因抢救无效死亡。

虽然消化道钡餐、电子计算机断层扫描(computed tomography, CT)及主动脉血管成像(CT angiography, CTA)、数字减影技术(digital subtraction angiography, DSA)、磁共振血管成像(MR angiography, MRA)等是临床上可选择的检查方法,但内镜检查仍是确诊的可靠手段。由于内镜检查可能诱发致命性大出血,对高度怀疑 AEF 患者可选择 CT 或 CTA 等无创手段,其下列表现具有特征性:①食管周围动脉瘤壁失去连续性,主动脉内区域出现气体;②紧邻主动脉壁出现气体、失去正常脂肪间隔;③CT 增强检查主动脉人工血管周围造影剂外溢^[5];结合相关病史和上述检查特点,或可明确诊断。

一旦明确诊断或高度怀疑主动脉食管瘘,需积

极手术治疗,内科保守治疗尚未见存活的报道。陈文等有^[6]在体外循环下开胸行异物及坏死组织切除、胸主动脉人工血管置换术抢救成功食管异物致主动脉食管瘘 1 例。方勇等^[7]报道食管异物导致主动脉食管瘘 12 例患者,其中 10 例经过一期手术切除病变主动脉并置换人工血管或行主动脉腔内覆膜支架置入,同时彻底外科清创,再行二期手术消化道重建,10 例分期手术全部痊愈出院,随访 1 个月~13 年均存活,另 2 例仅主动脉置入覆膜支架封堵瘘口均于术后 1 个月左右因再次大出血死亡;由此认为抢救此类患者需分期完成,一期移植人造血管控制出血、切除病变食管、清除纵隔和胸腔感染,二期行消化道重建。郎海波等^[8]报道 6 例主动脉食管瘘患者,由食管异物引起和降主动脉假性动脉瘤腔内修复术后发生者各 1 例手术前死亡;由升主动脉瘤引起和主动脉夹层主动脉置换术后发生者各 1 例手术中死亡;由降主动脉假性动脉瘤和主动脉夹层主动脉覆膜支架腔内修复术后引起者各 1 例,先经血管和食管瘘口处理,再予消化道重建,分期手术治疗均存活。徐恩五等^[9]报道食管癌术后发生胸主动脉瘘 6 例,经手术或尸证实;2 例保守治疗均死亡,4 例中 2 例术中死亡,1 例术后死亡,仅 1 例经修补瘘口存活。

由于患者初次出血可能就是致命性大出血,此时几乎没有抢救时机,如果初次出血即信号出血之后还没有发生致命性大出血之前,及时手术可能改变患者预后,即信号出血期可能是该病的最佳救治时机。一般认为,主动脉食管瘘的手术主要有 3 种方式:①直接缝合或修补主动脉食管瘘口,此法仅适用于病程短瘘口较小且感染不严重的患者,手术最佳时机在发病 24 h 以内;②采用主动脉侧壁钳夹、左心转流或体外循环下修剪主动脉感染坏死区,补片修补或主动脉移植;③主动脉腔内覆膜支架封堵联合消化道重建。手术方式应视具体病例及医院条件等因素个性化选择^[3,5]。另外,合并感染者清除、控制感染非常重要^[10]。

总之,加强对 AEF 的认识对于其诊断及治疗至关重要;虽然该病临床罕见,但由于预后严重,对于消化道出血伴有食管异物史(无论是否取出)、食管癌病史、食管支架植入史、主动脉夹层支架植入史以及主动脉瘤病史等 AEF 的高危人群,应特别警惕该病可能,及时行胸部 CT、主动脉 CTA 甚至主动脉造影等无创检查,可能在信号出血期做出诊断。

(下转第 176 页)

提示 APTT、TT、D-二聚体均较前明显好转,但纤维蛋白原明显降低。分析纤维蛋白原降低可能与腹膜后大量出血相关,低分子肝素钠的使用可能是导致患者腹膜后出血的原因之一。故 DM 患者无论进行预防性还是治疗性抗凝均需谨慎,应密切监测凝血功能。②DM 的微血管病变。③嗜血细胞综合征相关,嗜血细胞综合征引起弥散性血管内凝血和/或肝脏合成功能受损,可导致凝血功能障碍,包括凝血酶原时间延长、部分活化凝血活酶时间延长及纤维蛋白原降低、D-二聚体升高^[4]。本例患者入院时有发热、高甘油三酯血症、高铁蛋白血症、白介素 2 受体水平变化,根据 2004 年嗜血综合征诊断标准:发热、脾大、血细胞减少、高甘油三酯血症或低纤维蛋白原、骨髓检查有嗜血现象、NK 细胞活性降低或缺失、高铁蛋白血症、血清中可溶性白介素 2 受体水平的改变,符合以上 8 条中的 5 条即可诊断为嗜血细胞综合征。本例患者入院后拒绝行骨髓穿刺术,加之无血细胞减少、无浅表淋巴结及脾肿大,故不能明确诊断嗜血细胞综合征。该患者凝血功能异常和低纤维蛋白原可能是引起出血性肌炎及自发性腹膜后出血的重要原因之一。④与静脉补充人免疫球蛋白是否相关,目前尚不清楚^[5]。既往曾有相关文献报道 3 例 DM 患者合并出血性肌炎,其中 1 例皮肌炎病例是在静脉输注人免疫球蛋白数天后出现出血,

1 例则是在静脉输注人免疫球蛋白后第二天出现出血,另一例在出现出血之前已经连续 5 年每月规律接受静脉输注人免疫球蛋白^[6]。另外有罕见的免疫球蛋白引起血管内溶血但病情轻微且为自限性的报告^[7]。该患者治疗过程中使用小剂量免疫球蛋白,其是否参与自发性腹膜后出血的发病过程,需要进一步研究探讨。

参考文献

- 1 Han RD, Yan XX. A case report on spontaneous retroperitoneal hemorrhage [J]. Chin Med J, 2021, 134(14): 1750-1752.
- 2 Chandler JM, Kim YJ, Bauer JL, et al. Dilemma in management of hemorrhagic myositis in dermatomyositis [J]. Rheumatol Int, 2020, 40(2): 331-336.
- 3 Langguth DM, Wong RC, Archibald C, et al. Haemorrhagic myositis associated with prophylactic heparin use in dermatomyositis [J]. Ann Rheum Dis, 2004, 63(4): 464-465.
- 4 王彩盟, 崔渤莉, 李田兰, 等. 血浆置换抢救危重霍奇金淋巴瘤合并嗜血细胞综合征 1 例并文献复习 [J]. 内科急危重症杂志, 2021, 27(1): 77-79.
- 5 Li Fraine S, Coman D, Vallée Guignard V, et al. Spontaneous retroperitoneal hemorrhage in dermatomyositis [J]. Am J Med, 2021, 134(2): e137-e138.
- 6 Van Gelder H, Wu KM, Gharibian N, et al. Acute hemorrhagic myositis in inflammatory myopathy and review of the literature [J]. Case Rep Rheumatol, 2014, 2014: 639756.
- 7 Flegel WA. Pathogenesis and mechanisms of antibody-mediated hemolysis [J]. Transfusion, 2015, 55(0): S47-S58.

(2022-03-01 收稿 2022-03-30 修回)

(上接第 167 页)

需要特别指出的是,对于 AEF 的高危人群的内镜检查,需做好紧急手术或介入手术准备;由于食管第二狭窄处是 AEF 的好发部位,此处距中切牙 25 cm,所以,插入内镜至此处时尤其需谨慎操作,发现异常必须立即停止进镜或者退镜,不可盲动,以免诱发致命性大出血。

无论什么原因引起的主动脉食管瘘,均需积极手术治疗;尽早予病变主动脉置换人工血管并食管瘘口处理或覆膜支架主动脉腔内封堵止血,再及时消化道重建等后期手术,可能是挽救患者生命的较好方法。

参考文献

- 1 McComas BC, Miles PV, Katz BE. Successful salvage of an 8-month-old child with an aorto-esophageal fistula [J]. J Pediatr Surg, 1991, 26(12):

1394-1395.

- 2 王振晓, 曹晓明, 葛鑫颖, 等. 食管异物 234 例临床分析 [J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2019, 33(2): 148-151.
- 3 叶光华, 喻林升, 张益鹤. 主动脉食管瘘尸检报告并文献分析 [J]. 温州医学院学报, 2008, 38(4): 380-381.
- 4 丁强, 田德安. 内镜黏膜下剥离术后食道狭窄的防治研究进展 [J]. 内科急危重症杂志, 2021, 27(1): 1-4.
- 5 李莹, 汪炜, 刘颖群. 主动脉瘤食管瘘误诊误治分析 [J]. 临床误诊误治, 2014, 27(8): 1-3.
- 6 陈文有, 杨庆生, 张东东, 等. 手术成功救治食管主动脉瘘一例 [J]. 中国胸心血管外科临床杂志, 2015, 22(9): 889-890.
- 7 方勇, 赖颖, 董智慧, 等. 食管异物导致主动脉食管瘘的外科治疗 [J]. 上海医学, 2020, 43(7): 403-406.
- 8 郎海波, 张诗琪, 朱俊明, 等. 主动脉食管瘘的临床特征及预后分析 [J]. 中华消化内镜杂志, 2015, 32(5): 304-307.
- 9 徐恩五, 曾茜, 曾伟生, 等. 食管癌术后胸主动脉瘘的治疗经验 [J]. 实用医学杂志, 2011, 27(9): 1712-1713.
- 10 李锐. 消化道瘘内镜处理 [J]. 内科急危重症杂志, 2018, 24(1): 1-3.

(2020-12-23 收稿 2021-08-11 修回)