

·论著·

支气管Dieulafoy病活检后大咯血救治1例体会并文献复习*

武汉市第一医院呼吸内科 (湖北 武汉 430000)

刘旭 陈菁 杨硕 罗光伟 方青山 徐清 熊安洲

【摘要】目的 通过浅谈1例支气管Dieulafoy病大咯血救治过程的体会，总结复习支气管Dieulafoy病及内镜检查大咯血的救治。方法 回顾分析一例内镜检查过程中出现大咯血患者的救治过程，结合文献复习，探讨支气管Dieulafoy病的救治方法。结果 支气管扩张患者的支气管镜结果，支气管镜提示：左固有上叶前段开口粘膜异常，进行活检，出血约50mL，予常规镜下止血后，出血停止。但术后当日、术后第7天、术后第14天反复发生大咯血，内科保守治疗+血管介入栓塞术，无好转。患者血色素急剧下降，氧饱和度不能维持，紧急进行气管插管，提示鲜红色血栓堵塞左主支气管，镜下仍见渗血，胸外科进行左上叶切除术，术后病理提示为“肺结核”。结合患者病史及气管镜下粘膜表现以及支气管动脉造影，考虑患者为支气管Dieulafoy病。结论 支气管Dieulafoy病一旦活检出现咯血，致死率极高，常规镜下止血、球囊扩张压迫止血、血管介入等方法无效时，及时果断的进行出血目标肺段切除，有助于抢救患者，改善预后。

【关键词】支气管粘膜活检术；支气管Dieulafoy病；大咯血；支气管动脉栓塞术；球囊扩张；肺叶切除

【中图分类号】R562.2

【文献标识码】A

【基金项目】湖北省卫生健康委科研项目(编号：WJ2019M027)

DOI: 10.3969/j.issn.1009-3257.2020.06.006

Experience and Literature Review of 1 Case of Massive Hemoptysis After Bronchial Dieufay Disease Biopsy*

LIU Xu, CHEN Jing, YANG Shuo, et al. Department of Respiratory Medicine, Wuhan No.1 Hospital, Wuhan 430000, Hubei Province, China

[Abstract] **Objective** To summarize and review the treatment of bronchial Dieulafoy's disease and massive hemoptysis by endoscopy. **Methods** The treatment process of a patient with massive hemoptysis during endoscopic examination was retrospectively analyzed. Combined with literature review, the treatment methods of bronchial Dieulafoy disease were discussed. **Results** In patients with bronchiectasis, bronchoscopy showed that the mucosa of the anterior segment of the left superior proper lobe was abnormal. Biopsy was performed, and the bleeding was about 50 mL after routine hemostasis, the bleeding stopped. However, massive hemoptysis occurred again and again on the day after operation, 7 days after operation and 14 days after operation. The patient's hemoglobin decreased sharply, and oxygen saturation could not be maintained. A rapid endotracheal intubation indicated that the left main bronchus was blocked by bright red thrombus. Under the microscope, blood still seeped. Thoracic surgery was asked to perform left upper lobe resection. Postoperative pathology showed "pulmonary tuberculosis". Combined with the history of the patient, the mucosal manifestations under bronchoscopy and bronchial arteriography, the patient was considered as bronchial Dieulafoy disease. **Conclusion** Once hemoptysis occurs in bronchial Dieulafoy disease biopsy, the mortality rate is very high. When routine hemostasis, balloon dilatation and compression hemostasis, vascular intervention and other methods are ineffective, timely and decisive resection of the bleeding target lung segment is helpful to rescue patients and improve the prognosis.

[Key words] Bronchial Mucosal Biopsy; Bronchial Dieulafoy disease; Massive Hemoptysis; Bronchial Artery Embolization; Balloon Dilatation; Lobectomy

1 背景

支气管镜检查是诊断肺部疾病的常用检查手段，经支气管镜粘膜活检有助于鉴别病灶性质，创伤较小，是支气管镜检查中常规操作，但由于支气管镜检查是侵入性有创操作，常见的并发症为大咯血^[1]，一般情况下经局部止血可达到止血目的。支气

管Dieulafoy病是以支气管粘膜下动脉扩张或畸形为主要病理表现的一类疾病^[2]，其病因及发病机制可能与支气管动脉、肺动脉先天发育异常、气道慢性炎症或损伤有关，亦有认为其发生与长期大量吸烟有关，另外，部分患者有肺结核病史，亦有可能与肺结核的炎症损伤或支气管动脉的牵拉扩张有关^[3]。支气管Dieulafoy病发病率极低，粘膜镜下改变多样，临床

作者简介：刘旭，女，主治医师，硕士研究生，主要研究方向：呼吸疾病内镜治疗及肺肿瘤微创介入诊疗
通讯作者：刘旭

极易误进行活检，一旦出血，均为大咯血，大量出血堵塞气道，出现窒息风险，危及生命，一旦出现上述情况，则需要多种止血手段联合应用，必要时行外科手术治疗^[4]。本文介绍我院介入中心近期发生的一例支气管Dieulafoy病活检后大咯血病例的救治过程，结合既往此类病例救治经验，从而提出一些思考。

病历简介：潘某，女，66岁，退休，居住环境潮湿，通风欠佳，配偶有结核病史，反复发作，未规范抗痨治疗。此次患者因“再发咳嗽、低热1月余”入院。既往有慢性咳嗽病史20余年，曾诊断为“支气管扩张”，多次咯血史，反复住院治疗，仍频繁发作。有高血压病史，血压可控。入院查体：神清，消瘦，浅表淋巴结不大，双肺呼吸音粗，可及散在湿罗音；心律齐，未及杂音；腹软，双下肢不肿。入院后完善检、ESR均明显升高，胸部CT：提示双侧支气管扩张合并感染，左上叶可见斑片状高密度影，内见空洞样改变(图1-2)。予常规抗感染(头孢哌酮舒巴坦)(图1)治疗5天后，症状无好转，结合患者既往外院治疗经过，考虑有真菌、结核菌感染可能，遂安排行支气管镜检查，明确病原体；支气管镜下见各叶段支气管呈慢性炎症改变，粘膜苍白，管腔通畅，左上叶前段开口粘膜见局部隆起，凹凸不平，充血水肿(图3)。行粘膜活检，术后出血量约50mL，予去甲肾上腺素冰盐水、蛇毒血凝酶冰盐水局部灌注止血治疗，出血停止。当日夜间8时，患者用力排便后，再次出现大咯血，出血量约300mL，SpO₂降至80%，行急诊支气管动脉栓塞术，造影见双侧支气管动脉迂曲扩张(图4)。术后患者咯血停止，间断痰中带暗红色血丝。7天后中午进食时，患者再次突发咯血，血量约200mL，急诊进行全麻插管下支气管镜检查，见左主支气管被新鲜血栓堵塞管腔，行左下叶血栓清理术，左上叶继续被血栓堵塞(图5)，周边见少许鲜血渗出，行明胶海绵填塞止血治疗。术后患者未再咯血。7天后，患者再次突发咯血，鲜红色，血量逐渐增加，约500mL，氧饱和度急剧下降，生命体征不稳，再次急诊行支气管镜检查，全麻插管下，见左侧主支气管被鲜红色血栓堵塞管腔，周边见鲜红色血液渗出。结合患者病史、支气管镜下表现及支气管动脉造影结果，考虑为支气管Dieulafoy病，病情凶险，再次进行血管介入栓塞治疗把握不大，故请胸外科会诊后，予急诊手术，切除左上叶。术后送检病理(图6-7)，提示肺内干酪样病变，结核可能性大。术后予经验性抗痨治疗，恢复良好。

2 讨 论

1995年Sweerts等^[5]首次报道了支气管Dieulafoy病，至今国内外报道的病例有限，发病率低，较为罕见，但其大出血风险高，因此需加强对此疾病的认识。支气管Dieulafoy病常见症状为反复大咯血，文献报道咯血量最大可达1000mL，常无明显诱因；亦有报道患者表现为胸痛且无咯血，经支气管镜活检后出现大咯血后确诊^[6]。此病支气管镜下表现可见黏膜小结节样突起，表面可光滑，也可充血粗糙，个别有轻微搏动，有时突起表面覆盖有黄白色渗出物形成“小白帽”样表现，易被误认为腔内肿瘤结节。异常改变可形成新生物样肉芽结节致局部管腔阻塞，导致阻塞性肺炎，临床易误认为新生物进行活检，导致大出血窒息死亡。黏膜下异常血管可迂曲扩张呈蚯蚓样，并可有树枝样分叉，易被误认为是黏膜下肿瘤浸润而进行活检，导致致命性大出血。已报道的用于治疗支气管Dieulafoy病的方法包括内科保守药物治疗、支气管动脉栓塞术、球囊扩张术、支气管镜下氩气刀治疗、肺叶切除术等。目前多首选支气管动脉栓塞术，栓塞失败或栓塞后再次咯血进行病变肺叶切除术，仅有1例报道应用支气管镜下氩气刀治疗^[7]。病例中该患者有“支气管扩张”，术后病理支持结核诊断，肺结构破坏，有支气管Dieulafoy病患病的病理基础；病程中反复咯血，符合支气管Dieulafoy病症状；支气管动脉造影提示血管迂曲变形，符合该病支气管造影影像特点；但该患者粘膜活检后出现咯血，初期咯血量较小，止血效果可，大咯血行支气管动脉栓塞后，一段时间以缓慢渗血为主要表现，可能与患者血管网丰富但纤细有关，亦需考虑出血后抗感染力度不够，导致感染相关咯血可能。该病例的教训提示我们，要充分认知支气管Dieulafoy病的存在，避免盲目活检导致严重后果。咯血初期应用球囊扩张压迫止血，可能会有较好的治疗效果。

参考文献

- [1]赵鸣武.纤维支气管镜(可弯曲支气管镜)临床应用指南(草案)[J].中华结核和呼吸杂志,2000(3):5-6.
- [2]Pomplun S,Sheaff MT.Dieulafoy's disease of the bronchus:an uncommon entity[J].Histopathology,2005,46(5):598-599
- [3]Parrot A,Antoine M,Khalil A,et al.Approach to diagnosis and pathological examination in bronchial Dieulafoy disease:a case series[J].Respir Res.,2008,9(1):58.
- [4]刘丽琼,李艳丽,刘艳红,等.支气管Dieulafoy病的诊治进展[J].中华结核和呼吸杂志,2016,39(2):127-130.
- [5]Sweerts M,Nicholson AG,Goldstraw P,et al.Dieulafoy disease of the bronchus[J].Thorax,1995,50(6):697-698.
- [6]刘艳红,李艳丽,邢西迁,等.支气管Dieulafoy病的诊断与治疗[J].中国内镜杂志,2014,20(8):795-799.
- [7]Dalar L,Sokucu SN,Ozdemir C,et al.Endobronchial argon plasma coagulation for treatment of Dieulafoy disease[J].Respir Care,2015,60(1):e11-13. (本文图片见封二)

【收稿日期】2019-09-03

支气管Dieulafoy病活检后大咯血救治1例体会并文献复习*

(图片正文见第 12 页)

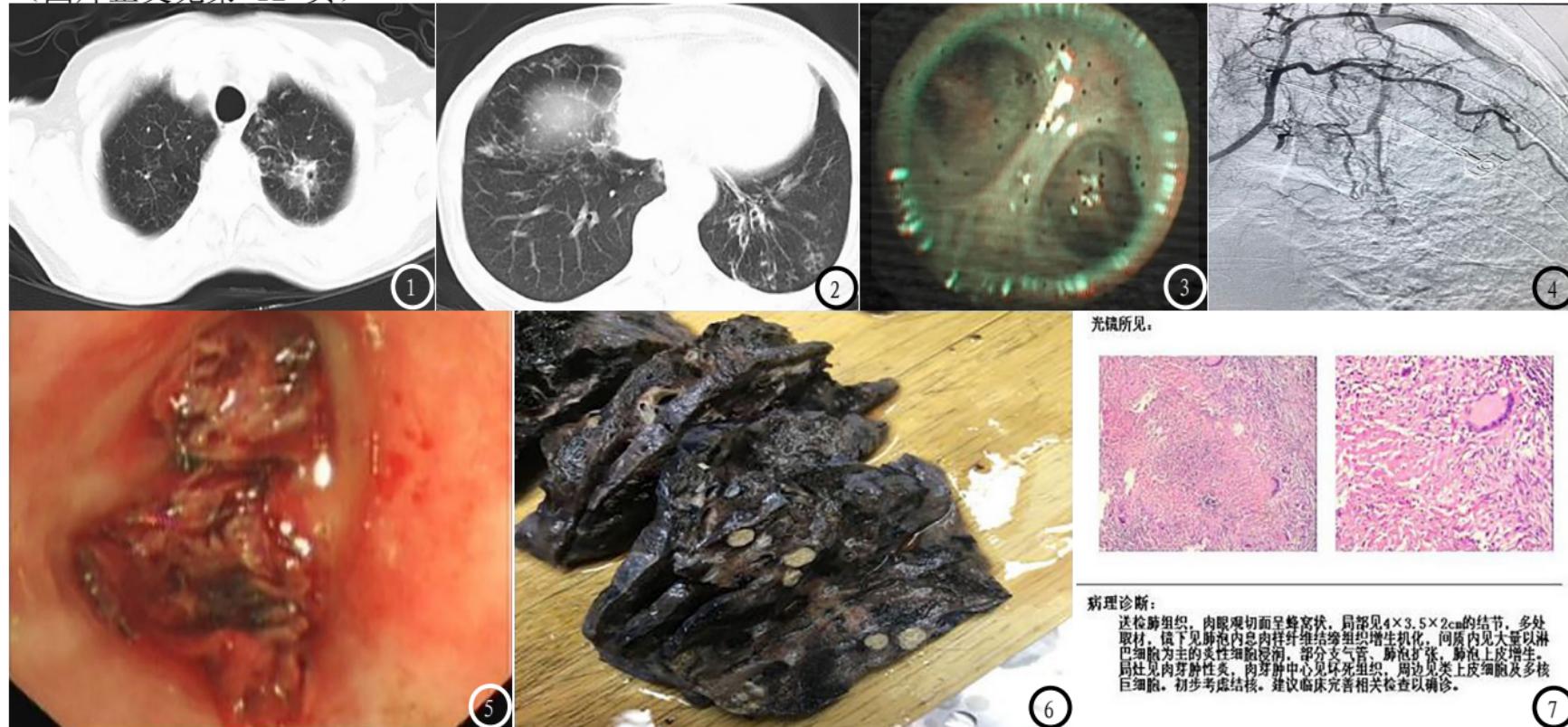


图3 左上叶前段黏膜NBI。图4 支气管动脉造影。图5 被血栓堵塞的左主支气管。图6 切除肺组织大体标本。图7 切除组织病理结果。

病理诊断:

送检肺组织，肉眼观切面呈蜂窝状，局部见 $4 \times 3.5 \times 2\text{cm}$ 的结节，多处取材。镜下见肺泡内息肉样纤维结缔组织增生机化，间质内见大量以淋巴细胞为主的炎性细胞浸润，部分支气管、肺泡扩张，肺泡上皮增生。局灶见肉芽肿性炎，肉芽肿中心见坏死组织，周边见类上皮细胞及多核巨细胞。初步考虑结核。建议临床完善相关检查以确诊。