

DOI: 10.16781/j.CN31-2187/R.20240274

• 病例报告 •

卵圆孔未闭合并肺动静脉瘘致反常性脑栓塞 1 例报告

郭廷昊, 程峙娟, 李芳, 陈未平, 殷敏, 涂江龙*

南昌大学第二附属医院神经内科, 南昌 330006

[关键词] 卵圆孔未闭; 肺动静脉瘘; 反常性栓塞; 脑栓塞

[引用本文] 郭廷昊, 程峙娟, 李芳, 等. 卵圆孔未闭合并肺动静脉瘘致反常性脑栓塞 1 例报告[J]. 海军军医大学学报, 2024, 45(12): 1583-1586. DOI: 10.16781/j.CN31-2187/R.20240274.

Patent foramen ovale and pulmonary arteriovenous fistula leading to paradoxical cerebral embolism: a case report

GUO Tinghao, CHENG Zhijuan, LI Fang, CHEN Weiping, YIN Min, TU Jianglong*

Department of Neurology, The Second Affiliated Hospital of Nanchang University, Nanchang 330006, Jiangxi, China

[Key words] patent foramen ovale; pulmonary arteriovenous fistula; paradoxical embolism; cerebral embolism

[Citation] GUO T, CHENG Z, LI F, et al. Patent foramen ovale and pulmonary arteriovenous fistula leading to paradoxical cerebral embolism: a case report[J]. Acad J Naval Med Univ, 2024, 45(12): 1583-1586. DOI: 10.16781/j.CN31-2187/R.20240274.

1 病例资料 患者女, 65 岁, 因“左侧肢体无力伴口齿不清 4 h 余”于 2023 年 7 月 14 日就诊于我院急诊科。2023 年 7 月 14 日早上 5 点起床时家属发现患者左侧肢体无力, 无法行走, 伴口齿不清, 能理解他人言语, 无恶心呕吐、肢体麻木等其他不适, 症状持续不能缓解, 遂拨打 120 并由救护车 9:00 送至我院急诊科。体格检查示患者神志清楚, 言语不清, 伸舌右偏, 左侧肢体肌力 3⁺级, 右侧肢体肌力 5 级, 病理反射未引出; 美国国立卫生研究院卒中量表 (National Institutes of Health stroke scale, NIHSS) 评分为 10 分。急诊头颅 MRI 检查示脑桥急性梗死 (图 1A、1B), 基底动脉、左侧小脑上动脉闭塞 (图 1C)。患者处于尿激酶静脉溶栓时间窗内, 告知患者家属静脉溶栓的必要性和风险并取得签字同意后, 于 9:45 给予尿激酶 100 万 U 静脉溶栓治疗。溶栓后 1 h 体格检查示患者神志清楚, 言语不清, 伸舌右偏, 左侧肢体肌力 4 级, 右侧肢体肌力 5 级, 病理反射未引出; NIHSS 评分为 4 分。

尽管溶栓后患者症状稍缓解, 但基底动脉闭塞可

能会导致病情进展甚至危及生命, 遂于 10:45 行经皮颅内动脉取栓术。术前造影示右侧胚胎型大脑后动脉, 左侧后交通动脉开放, 基底动脉远端闭塞 (图 1D)。术中在 4F 多功能管和泥鳅导丝引导下, 将 8F 指引导管输送至左侧椎动脉 V1 段; 撤除 4F 多功能管, 在 XT-27 微导管和 Synchro 微导丝 (0.014 英寸×200 cm, 1 英寸=2.54 cm) 引导下将 5.4F PassagewayTM 中间导管超选至基底动脉远端, 负压抽吸中间导管, 取出较多暗红色血栓 (图 1E); 再次造影见基底动脉及双侧大脑后动脉、小脑上动脉显影, 改良脑梗死溶栓分级为 3 级 (图 1F)。术后转入神经内科 ICU。术后体格检查示患者神志清楚, 言语不清, 伸舌右偏, 左侧肢体肌力 5⁻级, 右侧肢体肌力 5 级, 病理反射未引出; NIHSS 评分为 2 分。术后 24 h 复查头颅 CT 未见急性出血灶。

入院第 2 天完善实验室检查, 血常规、肝功能、肾功能、甲状腺功能、电解质、凝血功能四项、血浆 D-二聚体、同型半胱氨酸、血清肌钙蛋白等均未见异常, 总胆固醇为 5.94 mmol/L (正常参考值为<5.18 mmol/L), 糖化血红蛋白为 6.2% (正常参考值为<

[收稿日期] 2024-04-28

[接受日期] 2024-08-27

[基金项目] 江西省科技厅重点研发计划重点项目 (20212BBG71012), 江西省科技厅重点研发计划揭榜挂帅项目 (20223BBG71010). Supported by Key Project of Key Research and Development Program of Jiangxi Science and Technology Department (20212BBG71012) and Leading Project of Key Research and Development Program of Jiangxi Science and Technology Department (20223BBG71010).

[作者简介] 郭廷昊, 硕士生. E-mail: xsguo617@163.com

*通信作者 (Corresponding author). Tel: 0791-86300624, E-mail: tujianglong85@126.com

5.6 %), 口服葡萄糖耐量试验空腹血糖 6.64 mmol/L (正常参考值为 3.9~6.1 mmol/L)、60 min 血糖 14.40 mmol/L (正常参考值为 3.9~10.5 mmol/L)、120 min 血糖 16.26 mmol/L (正常参考值为 4.4~7.8 mmol/L)。2023 年 7 月 17 日心脏彩色多普勒超声及 18 日 24 h 动态血压、动态心电图检查均未见异常。7 月 17 日胸部 CT 检查示左肺下叶迂曲、扩张血管影, 考虑血管畸形可能; 发泡试验阳性, 支持右向左分流 (固有型, IV 级); 右心超声造影示在静息状态

下, 3 个心动周期内, 左心腔见一过性造影剂微泡显影 (图 2A), 右向左分流分级为 III 级 (>30 个微泡/帧)。7 月 23 日双侧髂、股、腘、胫前、胫后静脉彩色多普勒超声检查未见异常。7 月 25 日肺动脉 CT 血管成像示左肺下叶前内基底段血管畸形 (动静脉瘘) (图 2B)。无既往高血压病、糖尿病、心房颤动、脑卒中及高脂血症等病史, 无烟酒嗜好, 无其他家族史。结合患者症状及相关检查结果, 诊断为脑梗死、卵圆孔未闭、肺动静脉瘘、2 型糖尿病、高脂血症。

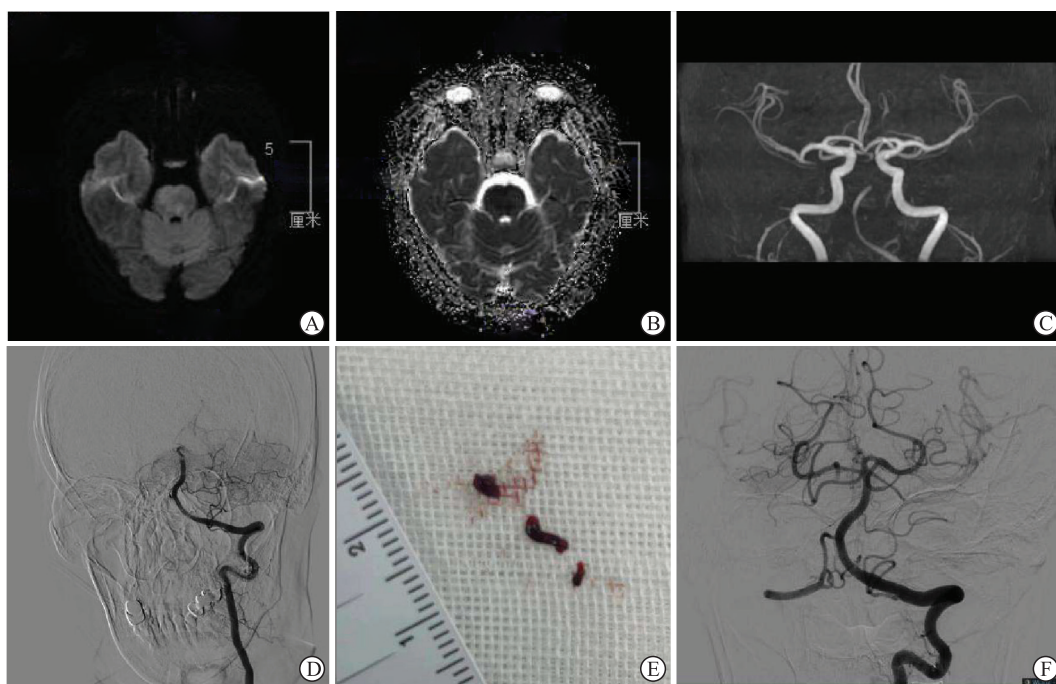


图 1 患者头颅磁共振成像及脑血管造影所见

A: 磁共振弥散加权成像示脑桥见斑片状、结节状稍高信号; B: 磁共振表观扩散系数图像示脑桥见斑片状信号减低, 以右侧为主; C: 磁共振血管成像示基底动脉、左侧小脑上动脉闭塞; D: 经皮颅内动脉取栓术前造影示右侧胚胎型大脑后动脉, 左侧后交通动脉开放, 基底动脉远端闭塞; E: 从基底动脉远端取出的暗红色血栓; F: 经皮颅内动脉取栓术后造影见基底动脉及双侧大脑后动脉、小脑上动脉均显影, 改良脑梗死溶栓分级为 3 级。

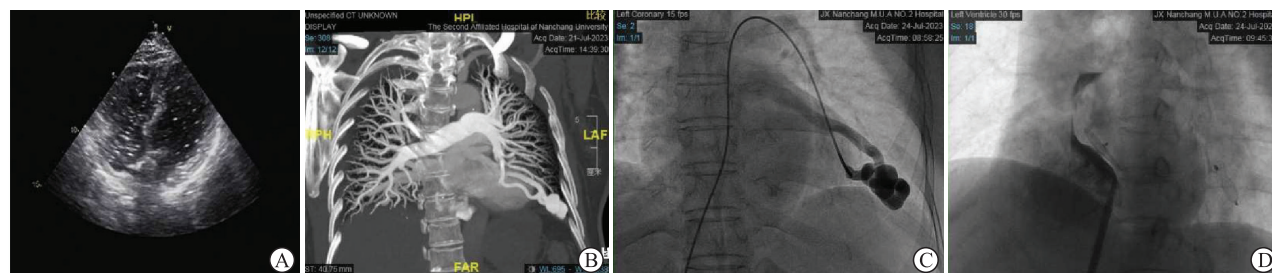


图 2 卵圆孔未闭及肺动静脉瘘的检出及手术影像

A: 右心超声造影示在静息状态下, 3 个心动周期内, 左心腔见一过性造影剂微泡显影; B: 肺动脉计算机断层扫描血管成像示左肺下叶前内基底段血管畸形 (动静脉瘘); C: 术中左肺动脉造影显示左下肺动静脉瘘, 入口直径为 6.44 mm, 出口直径为 6.86 mm; D: 卵圆孔封堵术后造影显示无房间隔残余分流, 形态正常。

根据患者急诊脑血管造影和取栓结果, Org 10172 急性脑卒中治疗试验 (Trial of Org 10172 in

Acute Stroke Treatment, TOAST) 分型为脑动脉栓塞型, 且 RoPE 评分为 3 分, 故考虑栓塞来源可能与卵

圆孔未闭和肺动静脉瘘有关。请心内科医师会诊, 考虑反常栓塞性脑梗死, 建议进一步行心导管检查及介入治疗。2023 年 7 月 20 日转入心内科, 予依诺肝素钠注射液 4 000 IU 每晚 1 次、硫酸氢氯吡格雷 75 mg 每天 1 次、阿托伐他汀 20 mg 每天 1 次治疗; 7 月 24 日行手术治疗, 术中左肺动脉造影提示左下肺动静脉瘘, 入口直径 6.44 mm、出口直径 6.86 mm (图 2C), 选择 P10/12 动脉导管未闭封堵器成功封堵肺动静脉瘘; 继续行右心房造影+卵圆孔未闭封堵术, 选择 P25/25 mm 卵圆孔未闭封堵器成功封堵卵圆孔 (图 2D); 手术过程顺利, 患者生命体征平稳。术后予阿司匹林 100 mg 每天 1 次、硫酸氢氯吡格雷 75 mg 每天 1 次抗血小板聚集, 阿托伐他汀 20 mg 每天 1 次调脂固斑, 阿卡波糖 50 mg 每天 3 次、达格列净 10 mg 每天 1 次控制血糖。术后复查头颅 CT 未见明显出血, 于 2023 年 7 月 26 日出院, 带阿司匹林 (100 mg 每天 1 次)、硫酸氢氯吡格雷 (75 mg 每天 1 次)、阿托伐他汀 (20 mg 每天 1 次)、阿卡波糖 (50 mg 每天 3 次)、达格列净 (10 mg 每天 1 次) 进行脑梗死二级预防。出院时体格检查患者神志清楚, 言语清晰, 伸舌稍右偏, NIHSS 评分为 1 分, 改良 Rankin 量表评分为 1 分。出院后 3 个月于我院门诊复查, 心脏彩色多普勒超声检查提示卵圆孔未闭封堵术后; 肺动脉 CT 血管成像检查提示封堵器状态良好, 无出血及脑血管事件发生。

2 讨 论 缺血性脑卒中占所有脑卒中的 60%~80%, 其具有高发病率、高死亡率、高致残率和高复发率等特点^[1], 明确缺血性脑卒中的病因对于疾病治疗和预防再发至关重要。目前缺血性脑卒中病因分型应用最广泛的是 TOAST 分型, 其中不明原因型 (隐源性) 脑卒中约占缺血性脑卒中病因的 17%^[2]。在临床诊治过程中, 常会忽略反常性栓子来源, 包括卵圆孔未闭、肺动静脉瘘等。反常性栓塞是指栓子通过心脏或肺脏, 从右向左反常分流, 最终进入体循环而形成的栓塞, 以反常性脑栓塞常见^[3]。本例患者存在从右向左分流的病灶, 结合脑血管造影及取栓手术结果综合考虑为脑动脉栓塞性脑梗死, 因此推测为反常性脑栓塞导致缺血性脑卒中。

卵圆孔未闭出现右向左分流是反常性栓塞的常见原因, 栓子可起源于下肢静脉^[4], 偶尔也来自盆腔静脉^[5]。肺动静脉瘘多位于肺下叶^[6], 可因出现从右向左分流而导致反常性栓塞^[7]。卵圆孔未闭和肺动

静脉瘘血流在心脏或血管中形成异常流通过程, 使血流速度减慢并积聚, 导致血栓形成风险增加。卵圆孔未闭联合肺动静脉瘘导致缺血性脑卒中的情况罕见, 2003 年 Schussler 等^[8]报道了第 1 例卵圆孔未闭合并动静脉瘘的病例, 目前国内外类似报道仅 5 例^[8-12], 其中 3 例是手术治疗卵圆孔未闭后患者出现神经系统症状, 经筛查发现肺动静脉瘘。本例患者在确诊脑梗死并治疗后为进一步寻找病因, 通过数字减影血管造影确诊卵圆孔未闭合并肺动静脉瘘。RoPE 评分 (反常栓塞风险评分) 是一种用于评估卵圆孔未闭是否为脑梗死病因的工具, RoPE 得分越高, 脑梗死是卵圆孔未闭所致可能性越大。本例患者 RoPE 评分为 3 分, 且为基底动脉栓塞, 较为罕见, 尽管患者有脑血管危险因素糖尿病, 但其并不是导致脑梗死的原因, 所以本例患者极有可能为卵圆孔未闭与肺动静脉瘘联合导致栓子形成, 进入脑动脉后引起缺血性脑卒中。

卵圆孔未闭与肺动静脉瘘目前的治疗方式主要是手术治疗。封堵手术治疗对于卵圆孔未闭是一项安全、有效的治疗方案, meta 分析表明与药物治疗组相比, 封堵手术组卵圆孔未闭患者脑卒中复发的风险降低^[13]。对于肺动静脉瘘, 在患者病情稳定时都应进行血管栓塞治疗^[7]。本例患者发现卵圆孔未闭及肺动静脉瘘后及时行手术治疗, 3 个月后复查未见明显的偏头痛及脑血管疾病症状。

总之, 本例报告可为临床医师寻找脑梗死病因提供思路。对于原因不明的脑卒中患者进行诊疗时, 需要考虑反常性脑栓塞的可能, 并详细筛查以确定是否存在卵圆孔未闭和无症状性肺动静脉瘘, 还需完善特定的辅助检查, 如右心超声造影等, 以避免漏诊。针对明确诊断的反常性脑栓塞, 需要有针对性地进行干预治疗并及时随诊和预后评估, 以改善患者预后。

[参考文献]

- [1] WU S, WU B, LIU M, et al. Stroke in China: advances and challenges in epidemiology, prevention, and management[J]. *Lancet Neurol*, 2019, 18(4): 394-405. DOI: 10.1016/S1474-4422(18)30500-3.
- [2] HART R G, CATANESE L, PERERA K S, et al. Embolic stroke of undetermined source: a systematic review and clinical update[J]. *Stroke*, 2017, 48(4): 867-872. DOI: 10.1161/STROKEAHA.116.016414.
- [3] JOLOBE O. Wide-ranging clinical spectrum of paradoxical embolism[J]. *Postgrad Med J*, 2022, 98(1166): 958-966. DOI: 10.1136/postgradmedj-2020-139691.

- [4] 黎丹丹, 程峙娟, 罗鑫, 等. 股深静脉瘤合并卵圆孔未闭致脑肺栓塞 1 例[J]. 中华神经科杂志, 2022, 55(2): 152-155. DOI: 10.3760/cma.j.cn113694-20210520-00352.
- [5] ABUSHORA M Y, BHATIA N, ALNABKI Z, et al. Intrapulmonary shunt is a potentially unrecognized cause of ischemic stroke and transient ischemic attack[J]. J Am Soc Echocardiogr, 2013, 26(7): 683-690. DOI: 10.1016/j.echo.2013.04.004.
- [6] WHITE R I Jr, LYNCH-NYHAN A, TERRY P, et al. Pulmonary arteriovenous malformations: techniques and long-term outcome of embolotherapy[J]. Radiology, 1988, 169(3): 663-669. DOI: 10.1148/radiology.169.3.3186989.
- [7] TELLAPURI S, PARK H S, KALVA S P. Pulmonary arteriovenous malformations[J]. Int J Cardiovasc Imaging, 2019, 35(8): 1421-1428. DOI: 10.1007/s10554-018-1479-x.
- [8] SCHUSSLER J M, PHILLIPS S D, ANWAR A. Pulmonary arteriovenous fistula discovered after percutaneous patent foramen ovale closure in a 27-year-old woman[J]. J Invasive Cardiol, 2003, 15(9): 527-529.
- [9] LIU X H, YANG J M. Management of paradoxical embolism in a patient with coexisting patent foramen ovale and masked pulmonary arteriovenous fistula: a case report[J]. Medicine (Baltimore), 2020, 99(15): e19507. DOI: 10.1097/MD.00000000000019507.
- [10] PETERS B, EWERT P, SCHUBERT S, et al. Rare case of pulmonary arteriovenous fistula simulating residual defect after transcatheter closure of patent foramen ovale for recurrent paradoxical embolism[J]. Catheter Cardiovasc Interv, 2005, 64(3): 348-351. DOI: 10.1002/ccd.20293.
- [11] GASPARDONE A, CITONE C, GIOFFRÈ G, et al. Simultaneous treatment of patent foramen ovale and pulmonary arteriovenous fistula in a patient with paradoxical embolism[J]. J Cardiovasc Med (Hagerstown), 2008, 9(3): 325-326. DOI: 10.2459/JCM.0b013e3282785263.
- [12] WOZNIAK L, MIELCZAREK M, SABINIEWICZ R. Paradoxical brain embolism in a young man: is it only a patent foramen ovale?[J]. Neurol Neurochir Pol, 2015, 49(1): 61-64. DOI: 10.1016/j.pjnns.2014.12.003.
- [13] MOJADIDI M K, ZAMAN M O, ELGENDY I Y, et al. Cryptogenic stroke and patent foramen ovale[J]. J Am Coll Cardiol, 2018, 71(9): 1035-1043. DOI: 10.1016/j.jacc.2017.12.059.

[本文编辑] 杨亚红