



[DOI] 10.3969/j.issn.1001-9057.2022.04.016

http://www.lcnkzz.com/CN/10.3969/j.issn.1001-9057.2022.04.016

## · 病例报告 ·

## 冠状动脉瘘并发感染性心内膜炎延诊一例

白杨 周强

[关键词] 冠状动脉瘘; 感染性心内膜炎; 延诊

[中图分类号] R563.5

[文献标识码] B

患者,女,16岁。因“反复发热4个月”入院。患者4个月前无明显诱因出现间断畏寒、发热,体温最高达39℃,下午较重,口服“消炎药”后缓解,间隔3天后再次发热,发热1天后可缓解,伴髋关节、膝关节疼痛,疼痛与发热无关,疼痛时双手活动受限,其他关节无不适症状,活动时胸闷、心慌,至当地医院就诊,诊断为类风湿关节炎、链球菌感染、肺部感染等,予以甲氨蝶呤片、柳氮磺吡啶肠溶片、洛索洛芬、木瓜风湿丸等治疗后,症状无明显缓解,遂自行停药。后患者仍有反复发热,遂来我院就诊,门诊以“发热待查”收入我院中医科。否认高血压、糖尿病等相关病史。体格检查:T 37℃,P 106/min,R 18/min,Bp 122/66 mmHg。神志清楚,发育正常,咽部无充血,颈软,全身皮肤巩膜无黄染,全身浅表淋巴结未及肿大。双肺呼吸音清,未闻及干湿啰音。心律齐,心界正常,未闻及病理性杂音。腹软,未触及肝脾肿大,未触及包块,无压痛及反跳痛。实验室检查结果:WBC计数、中性粒细胞计数、RBC计数、PLT计数均正常,Hb 112.0 g/L(115.0~150.0 g/L,括号内为正常参考值范围,以下相同);类风湿因子45.1 IU/ml(<20.0 IU/ml);球蛋白52.9 g/L(20.0~35.0 g/L)。血培养示解链球菌感染。心脏彩超结果示先天性心脏病,右冠状动脉右房瘘,未见明显赘生物。冠状动脉计算机断层扫描血管成像(CTA)检查示右冠状动脉近段明显增粗,向主动脉根部右后方迂曲走行并右冠状动脉-右房瘘形成(图1)。患者入院后考虑肺部感染所致发热,予以抗生素、抗病毒、化痰、止咳等治疗2周,无再次发热,因检查发现右冠状动脉-右心房瘘,遂转入心血管内科进一步治疗。转入后依据患者此次确诊先天性心脏病的情况,血培养检查结果及反复发热特点诊断为感染性心内膜炎,继续予以青霉

素抗感染治疗。于2020年10月16日在局麻下行血管介入手术,术中顺利植入P1820mm动脉导管未闭(PDA)封堵器于瘘管内(图2)。术后第5天出院。术后1个月随访复查冠状动脉CTA结果显示瘘管封堵成功(图3),患者无发热及其他不适症状。



图1 患者行血管介入手术前冠状动脉CTA检查结果

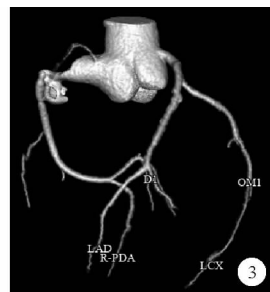


图3 患者术后1个月随访复查冠状动脉CTA结果

## 讨论

冠状动脉瘘是一种罕见的先天性心脏病,为冠状动脉与冠状静脉、心腔、肺动脉等的异常连接。相关文献报道其发病率为0.002%~1.3%<sup>[1]</sup>。大部分冠状动脉瘘患者无明显症状或症状轻微<sup>[2]</sup>,常在心脏彩超或冠状动脉造影时意外发现<sup>[3]</sup>,此类患者瘘管较小,分流量少,危害有限,有一定的自愈性,无需特殊治疗,预后较好<sup>[4]</sup>。但瘘管较大时可引起冠状动脉供血不足,出现胸闷、胸痛等不适,即“窃血综合征”<sup>[5]</sup>。而出现左向右分流且分流量较大时,可引起心功能不全及肺动脉高压<sup>[6]</sup>,此类患者预后较差,需要早期进行手术治疗<sup>[5,7]</sup>。由于缺乏特异的临床症状和体征,因此冠状动脉瘘往往容易漏诊、延诊,贻误



图2 患者行血管介入手术过程图(A:封堵前;B:封堵中;C:封堵后,如箭头所示)

最佳治疗时机。

本例患者罹患感染性心内膜炎,为此类疾病的少见合并症。感染性心内膜炎作为临床上危害极大的一类疾病,死亡率及复发率均较高。有文献报道,感染性心内膜炎的院内死亡率高达 15%~30%,且有 1%~6% 的复发概率,严重并发症多,如未能有效治疗,预后极差<sup>[8]</sup>。因此,能否早期识别、规范化治疗严重影响患者预后<sup>[9]</sup>。本研究报道的感染性心内膜炎患者在诊治过程中意外确诊冠状动脉瘘,虽经介入手术有效治疗,但作为此类疾病的罕见并发症,其诊治经过有许多值得借鉴之处。

先天性冠状动脉瘘的发生机制,目前考虑为心肌中血管窦状间隙在胚胎期的发育障碍所致,主要导致冠状动脉与心腔或血管形成异常交通,可单独存在,也可合并其他心脏畸形<sup>[10-11]</sup>。这种变异的临床表现多种多样,表现为连接部位、累及血管、瘘管大小、形态及数量的巨大差异。而这些差异对应的并发症差异也较大。较小的瘘管临床症状较轻,并有 1%~2% 的自愈率,预后较好<sup>[4]</sup>。目前报道较多的并发症主要与瘘管较大且存在左向右分流有关,表现为心功能不全,有临床研究统计其发生率为 12%<sup>[4,12]</sup>。本例以感染性心内膜炎为主要并发症的临床报道较少,其对应的发病率也较低,仅 3%,因此也容易漏诊、误诊<sup>[6,13]</sup>。

感染性心内膜炎主要与异常分流导致的血流动力学异常及内膜损伤相关。具体说来包括以下两点:(1)血流从高压腔(本例的冠状动脉)经先天分流(本例为先天性瘘管)至低压腔(本例的右心房)。内膜灌注压力下降,有利于微生物沉积和生长。(2)高速射流冲击心腔或血管内膜,导致局部损伤,不仅易于感染,且容易造成血小板聚集及纤维蛋白沉着,利于细菌定植<sup>[8,14]</sup>。该患者瘘管较大,且位于冠状动脉与右心房之间,分流量大、压差大,为感染性心内膜炎的高危人群。

冠状动脉瘘并发感染性心内膜炎的治疗首先是控制感染,即有效治疗感染性心内膜炎。具体来说是早期明确诊断,早期应用抗菌素,以静脉用药为主,大剂量、长疗程且针对致病菌敏感的抗生素治疗<sup>[8,15]</sup>。感染性心内膜炎患者病情容易反复,这与细菌表面血小板聚集及纤维蛋白沉积阻止吞噬细胞进入,难以彻底灭菌有关<sup>[8,16]</sup>。本例患者入院前病情反复,主要为诊断不清,抗菌时间不足所致。本例患者入院后血培养提示链球菌感染,且对青霉素敏感,予以足量青霉素长程抗菌治疗后未再出现发热。控制并发症后应针对基础心脏病进行治疗,以预防新的并发症产生。针对冠状动脉瘘的治疗主要为外科手术及内科介入封堵两种,介入治疗以其创伤小、恢复快的特点成为此类患者的首选<sup>[6,14]</sup>,本例患者即在介入治疗后获得了良好的治疗效果,后续随访显示瘘管几乎完全封堵消失,预后良好。但有文献显示,在婴幼儿患者中,外科手术的成功率更高,且并发症更少<sup>[17]</sup>。因此,在临床工作中需综合考虑、选择。

本例患者病史达 4 个月之久,未能及时诊断感染性心内膜炎,并误诊为结缔组织疾病,反复发热,治疗效果差。转入我院后及时确诊,治疗后好转,随访恢复良好。分析延诊原因包括:(1)临床经验不足:冠状动脉瘘为罕见先天性心脏病,而感染性心内膜炎为其少见并发症,临床上较少发现,易误诊为普通肺部感染及菌血症,造成误诊、漏诊。(2)以偏概全,未建立多元

化的诊疗思维:该患者为年轻女性,类风湿因子阳性,外院诊断为结缔组织疾病合并感染,忽视了感染性心内膜炎患者可以引起免疫系统激活,进而出现类风湿因子阳性。如果以多元化的诊疗思维分析,认真完善检查,及时诊断及时治疗,可以有效避免此类情况的发生。

冠状动脉瘘并发感染性心内膜炎为临床少见疾病,病情容易反复,如未能及时有效治疗,预后差,严重者可危及生命。结合本例患者的治疗过程,提出以下防范漏诊、误诊措施:(1)加强该病临床知识的普及,提高临床医师对此类罕见病的警惕。对于不明原因的反复发热患者,尤其是危险因素较少的年轻患者,应仔细完善心脏彩超、血培养等检查。(2)建立多元化的临床诊疗思维,拓宽思路,对于疑难杂症,从多种疾病入手,逐一认真排查,提高自身临床能力。

综上所述,冠状动脉瘘并发感染性心内膜炎临床少见,易漏诊、误诊,在临床工作中应注意筛查,以减少漏诊、误诊,改善患者预后。

## 参 考 文 献

- [1] Ponthier L, Brenot P, Lambert V, et al. Closure of Isolated Congenital Coronary Artery Fistula: Long-Term Outcomes and Rate of Re-intervention [J]. *Pediatr Cardiol*, 2015, 36(8): 1728-1734.
- [2] Christmann M, Hoop R, Dave H, et al. Closure of coronary artery fistula in childhood: treatment techniques and long-term follow-up [J]. *Clin Res Cardiol*, 2017, 106(3): 211-218.
- [3] Yamanaka O, Hobbs RE. Coronary artery anomalies in 126,595 patients undergoing coronary arteriography [J]. *Cathet Cardiovasc Diagn*, 1990, 21(1): 28-40.
- [4] Kumar B, Kumar A, Kumar G, et al. Role of transesophageal echocardiography in surgical retrieval of embolized amplatzer device and closure of coronary-cameral fistula [J]. *Ann Card Anaesth*, 2017, 20(3): 351-354.
- [5] Buccheri D, Chirco PR, Geraci S, et al. Coronary Artery Fistulae: Anatomy, Diagnosis and Management Strategies [J]. *Heart Lung Circ*, 2018, 27(8): 940-951.
- [6] Li X, An J, Wang S, et al. A Large Isolated Congenital Left Circumflex Artery-to-Right Atrial Fistula in a 9-Year-Old Child [J]. *Front Pediatr*, 2020, 8: 51.
- [7] Darwazah AK, Hussein IH, Hawari MH. Congenital circumflex coronary arteriovenous fistula with aneurysmal termination in the pulmonary artery [J]. *Tex Heart Inst J*, 2005, 32(1): 56-59.
- [8] 葛均波, 徐永健, 王辰. 循环系统疾病 [M]. 第九版: 内科学, 2018, 314.
- [9] Chirio D, Le Marechal M, Mocer P, et al. Factors associated with unfavorable outcome in a multicenter audit of 100 infective endocarditis [J]. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis*, 2019, 38(1): 109-115.
- [10] Luo L, Kebede S, Wu S, et al. Coronary artery fistulae [J]. *Am J Med Sci*, 2006, 332(2): 79-84.
- [11] 延东娥, 陈新云, 唐红, 等. 先天性冠状动脉瘘误诊四例分析 [J]. *临床误诊误治*, 2017, 30(2): 32-35.
- [12] Sherwood MC, Rockenmacher S, Colan SD, et al. Prognostic significance of clinically silent coronary artery fistulas [J]. *Am J Cardiol*, 1999, 83(3): 407-411.
- [13] Said SA, Lam J, van der Werf T. Solitary coronary artery fistulas: a congenital anomaly in children and adults. A contemporary review [J]. *Congenit Heart Dis*, 2006, 1(3): 63-76.
- [14] Lee WC, Fang HY, Huang CF, et al. Antegrade approach for closure of distal and tortuous congenital coronary artery fistula: A case report [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2018, 97(50): e13747.
- [15] Teman NR. Commentary: How Much is Too Much: The Role of Oral Antibiotics Following Completion of Intravenous Therapy for Infective Endocarditis [J]. *Semin Thorac Cardiovasc Surg*, 2020, 33(3): 699-700.
- [16] Rezar R, Lichtenauer M, Haar M, et al. Infective endocarditis-A review of current therapy and future challenges [J]. *Hellenic J Cardiol*, 2020, 62(3): 190-200.
- [17] Wang X, Pang C, Liu X, et al. Congenital coronary artery fistula in pediatric patients: transcatheter versus surgical closure [J]. *BMC Cardiovasc Disord*, 2020, 20(1): 484.

(收稿日期: 2021-08-09)

(本文编辑: 周三凤)