

2011,39(5):657-661.

• 病例报告 •

青少年川崎病合并冠状动脉3支病变1例*

李晗^{1,2} 况春燕^{1,2}

[摘要] 本文报道1例16岁的青少年患者,川崎病史6年,不规则口服阿司匹林抗血小板治疗,未规律复诊。在患川崎病后6年因胸痛症状入院,入院后冠状动脉造影提示冠状动脉3支病变、前降支开口闭塞、回旋支近段狭窄50%、右冠状动脉近段以远完全闭塞。给予冠状动脉旁路移植术治疗后,患者胸痛缓解。本文针对川崎病引起的冠状动脉病变情况及其治疗进行分析。

[关键词] 川崎病;冠状动脉瘤;冠状动脉旁路移植术

DOI:10.13201/j.issn.1001-1439.2024.02.013

[中图分类号] R541.3 **[文献标志码]** D

One case report on Adolescent Kawasaki disease combined with a triple branch coronary artery lesion

LI Han^{1,2} KUANG Chunyan^{1,2}

(¹Department of Cardiology, Affiliated People's Hospital of Guizhou Medical University, Guiyang, 550002, China; ²Department of Cardiology, Guizhou Provincial People's Hospital)

Corresponding author: KUANG Chunyan, E-mail: xiaokcy@sina.com

Abstract This paper reports a 16-year-old adolescent patient with a history of Kawasaki for 6 years who was treated with irregular antiplatelet therapy(oral aspirin) without regular follow-up visits. He was admitted to hospital due to chest pain after Kawasaki disease six years. Coronary angiography revealed lesions in three branches of the coronary artery, complete occlusion of the anterior descending branch, 50% stenosis of the proximal circumflexal branch, and complete occlusion of the proximal right coronary artery. After coronary artery bypass grafting, the patient's chest pain was relieved.

Key words Kawasaki disease; coronary artery aneurysm; coronary artery bypass grafting

*基金项目:贵州省优秀青年科技人才项目(第十二批)(No:黔科合平台人才[2019]5662);贵州省科技计划项目(No:黔科合基础[2018]1097)

¹贵州医科大学附属医院心内科(贵阳,550002)

²贵州省人民医院心内科

通信作者:况春燕,E-mail:xiaokcy@sina.com

引用本文:李晗,况春燕.青少年川崎病合并冠状动脉3支病变1例报告[J].临床心血管病杂志,2024,40(2):154-157.
DOI:10.13201/j.issn.1001-1439.2024.02.013.

- [14] Epstein AE, Kay GN, Plumb VJ, et al. Gross and microscopic pathological changes associated with non-thoracotomy implantable defibrillator leads[J]. Circulation, 1998, 98(15):1517-1524.
- [15] Mediratta A, Addetia K, Yamat M, et al. 3D echo cardiographic location of implantable device lead and mechanism of associated tricuspid regurgitation[J]. JACC Cardiovasc Imaging, 2014, 7(4):337-347.
- [16] Fanari Z, Hammami S, Hammami MB, et al. The effects of right ventricular apical pacing with transvenous pacemaker and implantable cardioverter defibrillator on mitral and tricuspid regurgitation[J]. J Electrocardiol, 2015, 48(5):791-797.
- [17] Mutlak D, Aronson D, Lessick J, et al. Functional tricuspid regurgitation in patients with pulmonary hypertension: is pulmonary artery pressure the only determinant of regurgitation severity? [J]. Chest, 2009, 135(1):115-121.
- [18] Li X, Zhu H, Fan X, et al. Tricuspid regurgitation outcomes in left bundle branch area pacing and comparison with right ventricular septal pacing[J]. Heart Rhythm, 2022, 19(7):1202-1203.
- [19] 林锦璇,周昱安,陈柯萍,等.比较常规右心室起搏与左束支起搏对三尖瓣反流的影响[J].中国心律失常学杂志,2021,25(5):391-396.
- [20] 王倩,李晓飞,王钊,等.左束支区域起搏对三尖瓣反流的影响[J].中国循环杂志,2021,36(12):1198-1204.
- [21] 王珍,陈倩,黄容,等.左束支起搏在心力衰竭合并房室传导阻滞患者中的临床疗效初步研究[J].临床心血管病杂志,2022,38(9):743-748.

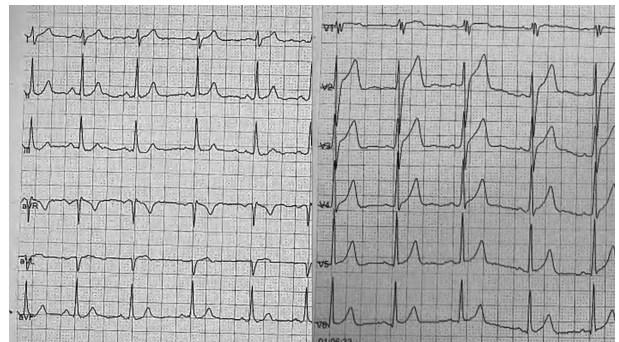
(收稿日期:2023-05-08)

川崎病(Kawasaki disease, KD),也称皮肤黏膜淋巴结综合征,是一种病因不明的急性血管炎,主要影响中型动脉,由川崎富作于1961年在日本首次对该病进行描述^[1]。KD在日本的发病率为每年309/10万儿童,而在瑞典、英国和美国KD的发病率为5/10万~8/10万^[2]。KD诱导的血管炎会导致冠状动脉瘤形成、内膜增生和冠状动脉粥样硬化,并进一步促成心血管疾病,多发生于25%~30%的未经治疗的KD患儿,并且冠状动脉病变与KD患儿的预后有着直接关系,所以识别有缺血和梗死风险的KD患者对于优化治疗和降低KD冠状动脉病变的发病率和病死率至关重要^[3]。本文报道1例16岁的青少年患者,KD病史6年,尽管在KD病程早期输注了丙种球蛋白,但仍然继续发展为严重的冠状动脉病变,出现胸痛症状,入院后完善冠状动脉造影提示:冠状动脉3支血管病变(其中前降支及右冠状动脉闭塞),最后于外院行冠状动脉旁路移植术,术后6个月返院行冠状动脉CT可见吻合口处通畅,患者胸痛症状缓解。

1 病例资料

患者,男,16岁,因反复发热6年,胸痛20d于2020-12-10入院。6年前,患者无明显诱因出现发热,体温最高达39.0℃,持续高热6d,伴颌下淋巴结肿大、眼红、杨梅舌、双下肢浮肿,于外院明确诊断为KD,予“输注丙种球蛋白2d、口服阿司匹林”治疗后好转出院,出院后服用阿司匹林2个月后自行停药,此后,未到医院规律复诊,未进行任何治疗。入院前20d出现胸骨后疼痛,活动后加重,遂就诊于我院。入院体格检查:体温36.0℃,脉搏98次/min,呼吸20次/min,血压120/66 mmHg(1 mmHg=0.133 kPa),全身浅表淋巴结未触及肿大,双肺无啰音,心界正常,心率98次/min,心律齐,各瓣膜听诊区未闻及明显杂音,双下肢无水肿。辅助检查:血常规:白细胞 $10.65 \times 10^9/L$ (参考值: $3.5 \times 10^9 \sim 9.5 \times 10^9/L$),红细胞 $5.81 \times 10^{12}/L$ (参考值: $4.5 \times 10^{12} \sim 6.5 \times 10^{12}/L$),血红蛋白183.0 g/L(参考值:139~184 g/L),血小板 $361.0 \times 10^9/L$ (参考值: $125 \times 10^9 \sim 350 \times 10^9/L$),中性粒细胞绝对数 $7.32 \times 10^9/L$ (参考值: $1.8 \times 10^9 \sim 6.3 \times 10^9/L$),C反应蛋白0.34 mg/L(参考值:0~5 mg/L),抗链球菌O 94.31 IU/mL(参考值:0~200 IU/mL),类风湿因子8.4 IU/mL(参考值:0~20.0 IU/mL),心肌酶、肌钙蛋白I、血脂、凝血功能未见明显异常。心电图:窦性心律(图1)。超声心动图提示:各房室大小正常,左冠状动脉主干内径3.8 mm,右冠状动脉主干内径4.4 mm,左室收缩功能测值正常[射血分数(EF)60%]。冠状动脉CT成像提示:右冠状动脉近中、远段管腔明显增宽、瘤样扩张(最宽处横径约10 mm),前降支近中段、回旋

支近段不同程度瘤样扩张(最宽处横径约13 mm);右冠状动脉近中段及前降支近中段病变管腔重度狭窄,回旋支近段病变管腔轻-中度狭窄,符合KD改变。入院后诊断为KD冠状动脉病变不稳定型心绞痛,予氯吡格雷+双嘧达莫双联抗血小板治疗,行冠状动脉造影提示:冠状动脉3支病变,前降支开口以远完全闭塞,回旋支近段狭窄50%,回旋支近段病理性扩张,右冠状动脉近段以远完全闭塞,可见自身桥侧支形成并逆向供应前降支远段(图2)。左右内乳动脉造影及主动脉根部造影未见狭窄。患者后续自动出院,于外院行冠状动脉旁路移植术(左侧内乳动脉见桥血管与前降支中段吻合)。术后6个月于我院复诊,患者无任何自觉症状,日常活动不受限。超声心动图提示:各房室大小正常,左心室收缩功能良好。冠状动脉CT提示:前降支移植术后吻合口及管腔通畅,右冠状动脉近中远段、前降支近中段、回旋支近段不同程度瘤样扩张、动脉瘤形成并多发混合斑块形成,右冠状动脉近中远段及前降支近中段管腔重度狭窄,左旋支近段管腔轻-中度狭窄(图3)。患者术后未再出现明显胸痛症状。



注:心电图提示窦性心律,电轴不偏。

图1 心电图

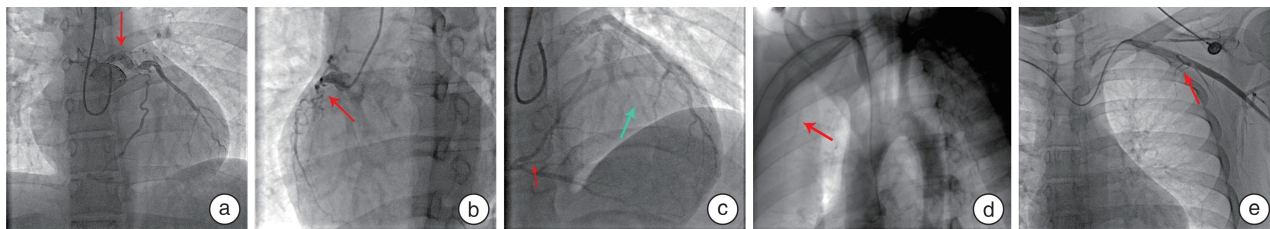
Figure 1 Admission ECG

2 讨论

KD可引起多种形态的冠状动脉病变,例如冠状动脉扩张、冠状动脉动脉瘤形成、冠状动脉狭窄,并可导致急性心肌梗死和心脏瓣膜病变,是儿童获得性心脏病的主要病因。其中关于KD引发冠状动脉病变的相关免疫反应是复杂的,包括先天性和适应性免疫细胞对冠状动脉壁的激活和浸润。根据对KD患者死后组织的研究发现,KD的血管病理被分为3个相继相连的病理过程,在疾病的头2周发生坏死性动脉炎,与中性粒细胞浸润有关,逐渐破坏冠状动脉内膜、中层,其中炎症浸润由CD8阳性的T细胞、IgA浆细胞、嗜酸粒细胞和巨噬细胞共同参与,它们释放促炎症细胞因子,导致心血管病变。同时,主要来自平滑肌细胞的肌成纤维细

胞及其基质产物逐渐阻塞了冠状动脉管腔。持续的亚急性和慢性脉管炎导致了冠状动脉的血管狭窄和血栓形成^[4]。回顾性分析统计了478例被诊断患有KD的患者,结果显示:男性、静脉注射丙种球蛋白耐药、贫血、低白蛋白血症、C反应蛋白水平

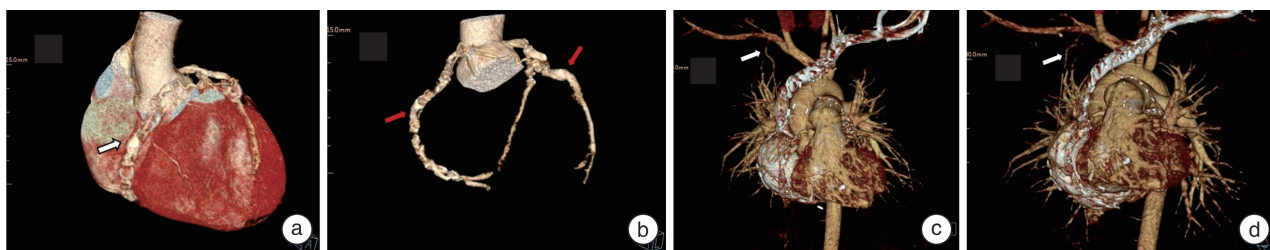
升高、嗜中性粒细胞计数升高、中性粒细胞升高和血小板水平升高等都是发生冠状动脉病变的KD患者的危险因素^[5]。本例患者为青少年男性,入院后查中性粒细胞绝对数及血小板水平升高,可能是该患者发生冠状动脉病变的危险因素。



注:a:可见前降支近段狭窄100%(红色箭头);b:右冠状动脉近段以远完全闭塞(红色箭头),可见自身桥侧支循环形成;c:可见回旋支到右冠状动脉的侧支循环形成逆向供应右冠状动脉(红色箭头),可见回旋支到前降支中远段的侧支循环形成逆向前降支(绿色箭头);d:右乳内动脉造影未见狭窄(红色箭头);e:左乳内动脉造影未见狭窄(红色箭头)。

图2 冠状动脉造影图像

Figure 2 Coronary angiography



注:a:入院后冠状动脉CT,右冠状动脉瘤状扩张(白色箭头处);b:入院后冠状动脉CT经三维重建后显示右冠状动脉及前降支瘤状扩张(红色箭头处);c:冠状动脉旁路移植术后6个月复查冠状动脉CT显示左侧乳内动脉见桥血管(白色箭头处);d:冠状动脉旁路移植术后6个月复查冠状动脉CT显示左侧乳内动脉见桥血管与前降支中段吻合。

图3 冠状动脉旁路移植术前、术后冠状动脉CT图像

Figure 3 Coronary CT before and after coronary artery bypass grafting

KD合并冠状动脉病变通常发生在20%~25%的未经治疗的病例中,本例为16岁青少年男性患者,6年前确诊KD后给予输注丙种球蛋白及抗血小板治疗,院外服用阿司匹林2个月自行停药,入院后超声心动图提示冠状动脉内径>3.5mm及冠状动脉CT提示冠状动脉一段的直径超过相邻节段的1.5倍,符合KD合并冠状动脉病变的诊断。此外,超声心动图提示:右冠状动脉主干内径4.4mm,按照冠状动脉病变的严重程度评估Z评分为小型冠状动脉瘤^[6]。对于KD导致的冠状动脉病变的处理方式目前还有一定的争议,JCS/JSCS 2020川崎病心血管后遗症诊断和管理指南中提到,对于出现急性冠状动脉综合征的KD,目前有直接药物治疗,包括抗血小板药物^[7]、抗凝剂、冠状血管扩张剂、抗心绞痛药物和溶栓药物,以及血管病变的间接治疗,如血管紧张素转换酶抑制剂(ACEI)、血管紧张素II受体阻滞剂(ARB)(IIb类,C级)和他汀类药物(IIb类,C级)^[8]。目前的

研究表明:在发热后10d内给予适当的静脉注射丙种球蛋白抗炎治疗可将冠状动脉扩张或动脉瘤的风险从25%降至5%^[9]。本例患者在发热后即接受了抗血小板药物治疗,但出院后自行停药,6年后出现胸痛症状,且活动后胸痛加重入院,入院后行冠状动脉造影提示:冠状动脉3支病变。随后予双嘧达莫及氯吡格雷抗血小板治疗,患者确诊KD后未规律服用抗血小板药物,可能是导致冠状动脉病变严重的原因之一。

KD合并冠状动脉病变的侵入性治疗包括经皮冠状动脉介入治疗和冠状动脉旁路移植术^[10]。对于KD合并冠状动脉病变的患儿,是否应采用溶栓治疗或直接介入治疗,目前尚无足够的证据^[11]。且目前经皮冠状动脉介入治疗的经验极为有限^[12-13]。冠状动脉旁路移植术用于治疗KD导致的冠状动脉损害,其手术指征与冠状动脉外科手术指征大致相同^[14],针对冠状动脉狭窄性病变,左主干严重狭窄、两支血管闭塞或3支病变均为手术

指征,但是应考虑以下几点:狭窄的形态、年龄、体型、性别、药物依从性、生活计划和长期结果、成本和风险^[15]。从该患者情况来看:患者多支血管病变,右冠状动脉及前降支开口完全闭塞,且合并有瘤样扩张,血管开通的成功率较低,即使开通血管后,支架的落脚点不好,且瘤样扩张处支架贴壁不好,导致支架再狭窄的发生率增高,因此综合考虑后,建议患者优选旁路移植术进行血运重建^[1]。患者后续于外院行冠状动脉旁路移植术手术,术后6个月于我院复查冠状动脉CT提示:左侧乳内动脉见桥血管与前降支中段吻合,吻合口通畅。患者胸痛症状缓解。

对于KD合并冠状动脉病变患儿存在长期的心血管并发症风险,需要长期在专科门诊随诊,超声心动图能早期发现冠状动脉扩张,是无创经济的检查冠状动脉是否受损的方法,早期发现、早期诊断和规律治疗,是减少严重心血管事件发生的关键环节,应引起医患双方的高度重视,以改善预后^[13,16-17]。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

- [1] Magro P, Carvalho N, Anjos R, et al. Coronary artery bypass grafting in a child with Kawasaki disease[J]. *Rev Port Cardiol(Engl Ed)*, 2021, 40(7):519.
- [2] Mossberg M, Mohammad AJ, Kahn F, et al. High risk of coronary artery aneurysm in Kawasaki disease[J]. *Rheumatology(Oxford)*, 2021, 60(4):1910-1914.
- [3] Rife E, Gedalia A. Kawasaki Disease: an Update[J]. *Curr Rheumatol Rep*, 2020, 22(10):75.
- [4] Noval Rivas M, Arditi M. Kawasaki disease: pathophysiology and insights from mouse models[J]. *Nat Rev Rheumatol*, 2020, 16(7):391-405.
- [5] Chang LS, Lin YJ, Yan JH, et al. Neutrophil-to-lymphocyte ratio and scoring system for predicting coronary artery lesions of Kawasaki disease[J]. *BMC Pediatr*, 2020, 20(1):398.
- [6] Rajasekaran K, Duraiyarsan S, Adefuye M, et al. Kawasaki disease and coronary artery involvement: a narrative review[J]. *Cureus*, 2022, 14(8):e28358.
- [7] 袁祖贻,肖懿慧. 急性冠状动脉综合征抗血小板降阶治疗策略的研究进展[J]. *临床心血管病杂志*, 2022, 38(10):767-770.
- [8] Fukazawa R, Kobayashi J, Ayusawa M, et al. JCS/JSCS 2020 Guideline on Diagnosis and Management of Cardiovascular Sequelae in Kawasaki Disease[J]. *Circ J*, 2020, 84(8):1348-1407.
- [9] Bratincsak A, Hong TM, Melish ME. Acute adult-onset kawasaki disease complicated by coronary artery aneurysms, thrombosis, and st-segment elevation myocardial infarction[J]. *JACC Case Rep*, 2021, 3(2):276-279.
- [10] Zhang D, Liu L, Huang X, et al. Insights into coronary artery lesions in Kawasaki Disease[J]. *Front Pediatr*, 2020, 8:493.
- [11] Kwak Y, Kwak JG, Cho S, et al. Long-term clinical outcomes of coronary artery bypass grafting in young children with Kawasaki disease[J]. *Cardiol Young*, 2022, 32(3):459-464.
- [12] Lee J, Seo J, Shin YH, et al. ST-segment elevation myocardial infarction in Kawasaki disease: A case report and review of literature[J]. *World J Clin Cases*, 2022, 10(26):9368-9377.
- [13] Kitamura S, Tsuda E. Significance of Coronary Revascularization for Coronary-Artery Obstructive Lesions Due to Kawasaki Disease[J]. *Children(Basel)*, 2019, 6(2):110.
- [14] 张仁见智,于鑫溢,刘志刚. 冠状动脉旁路移植术后心房颤动的预测与预防[J]. *临床心血管病杂志*, 2023, 39(4):313-319.
- [15] 王晨,董念国,蒋雄刚. 急诊冠状动脉旁路移植术的研究进展[J]. *临床心血管病杂志*, 2021, 37(3):196-199.
- [16] Abu Akel M, Hellman YM, Sawaed S, et al. Treatment and imaging modalities of giant coronary aneurysms resulting from kawasaki disease and presenting as acute inferior wall myocardial infarction[J]. *Case Rep Cardiol*, 2021, 2021:8878358.
- [17] Das M, Narayan P. Coronary artery bypass grafting in children for atheromatous and non-atheromatous lesions[J]. *Indian J Thorac Cardiovasc Surg*, 2021, 37(Suppl 1):155-164.

(收稿日期:2023-06-27)