



doi:10.7659/j.issn.1005-6947.2023.09.010
http://dx.doi.org/10.7659/j.issn.1005-6947.2023.09.010
China Journal of General Surgery, 2023, 32(9):1370-1378.

· 临床研究 ·

1977—2021年文献333例胰管出血病例的临床特征分析

王健, 王成果, 惠立良, 段东峰, 鲁建国

(中国人民解放军空军军医大学第二附属医院 普通外科, 陕西 西安 710038)

摘要

背景与目的: 胰管出血 (HP) 是罕见的上消化道出血的原因, 目前尚无公认的诊疗标准。本研究总结近40年来文献报道的HP患者的临床特征, 以期加深对HP的认识, 提高早期识别与诊断的能力, 为临床规范诊疗策略方面提供一定的理论依据。

方法: 收集1977年1月—2021年12月公开发表关于HP的相关文献, 分析HP患者的病因、临床表现、实验室检查、影像学检查、诊断治疗及预后情况。

结果: 纳入文献151篇, 共333例患者, 其中男性267例, 女性66例, 男女比例约为4:1; 年龄3~94岁, 平均45.9岁。病因以胰腺炎 (82.3%) 最常见, 其中慢性胰腺炎占89.1%, 其次为胰周动脉瘤 (6.0%) 和胰腺肿瘤 (5.4%)。最常见的临床表现为黑便 (74.2%) 和腹痛 (53.8%)。影像学诊断主要依靠上消化道内镜、腹部增强CT及腹腔相关动脉造影, 282例行上消化道内镜检查, 共140例 (49.6%) 可以经内镜检查明确诊断。204例行腹部CT检查, 其中假性动脉瘤120例 (58.8%)、假性囊肿46例 (22.5%)、胰腺肿瘤15例 (7.4%)、胰周动脉瘤13例 (6.4%)、胰管结石4例 (2.0%)。193例患者行腹腔相关动脉造影检查, 112例 (58.0%) 显示阳性结果。最常见出血源是脾动脉 (41.2%), 其次是胃十二指肠动脉 (16.7%)、囊壁出血 (9.9%)、胰十二指肠动脉 (9.6%)。36例患者选择保守治疗。180例患者尝试了介入治疗, 147例 (81.7%) 患者成功; 140例患者接受手术治疗。9例患者选择其他方式。218例患者的随访结果显示, 197例 (91.4%) 无复发性出血, 13例 (6.0%) 再出血, 5例 (2.3%) 死亡。

结论: HP确诊较为困难, 应结合病史、临床表现综合判断, 必要时进行重复的影像学检查以提高诊断率。治疗以针对病因为主导的综合治疗为主, 同时根据疾病的临床进程选择恰当的治疗方式。

关键词

出血; 胰腺管; 动脉瘤, 假性; 胰腺炎, 慢性

中图分类号: R657.5

An analysis of the clinical characteristics of 333 cases of hemosuccus pancreaticus reported in the literature from 1977 to 2021

WANG Jian, WANG Chengguo, HUI Liliang, DUAN Dongfeng, LU Jianguo

(Department of General Surgery, the Second Affiliated Hospital of Air Force Medical University, Xi'an 710038, China)

Abstract

Background and Aims: Hemosuccus pancreaticus (HP) is a rare cause of upper gastrointestinal

基金项目: 国家自然科学基金青年科学基金资助项目 (81001087)。

收稿日期: 2022-12-11; **修订日期:** 2023-02-07。

作者简介: 王健, 中国人民解放军空军军医大学第二附属医院主治医师, 主要从事胆胰肿瘤方面的研究。

通信作者: 鲁建国, Email: lujguo@fmm.edu.cn

bleeding, and there are currently no recognized diagnostic and treatment standards. This study summarized the clinical characteristics of HP patients reported in the literature over the past four decades to enhance our understanding of HP, improve early recognition and diagnosis, and provide a theoretical basis for standardizing clinical diagnostic and treatment strategies.

Methods: The relevant literature published from January 1977 to December 2021 concerning HP was collected. The etiology, clinical manifestations, laboratory tests, imaging examinations, diagnostic and treatment methods, and prognosis of HP patients were analyzed.

Results: A total of 151 articles were included, comprising 333 patients, including 267 males and 66 females, with a male-to-female ratio of approximately 4:1. The age ranged from 3 to 94 years, with an average age of 45.9 years. The most common cause was pancreatitis (82.3%), with chronic pancreatitis accounting for 89.1%, followed by peripancreatic artery aneurysm (6.0%) and pancreatic tumors (5.4%). The most common clinical manifestations were melena (74.2%) and abdominal pain (53.8%). Imaging diagnosis primarily relied on upper gastrointestinal endoscopy, contrast-enhanced abdominal CT, and celiac artery angiography. Among the 282 patients who underwent upper gastrointestinal endoscopy, 140 (49.6%) received a definitive diagnosis. Abdominal CT scans were performed in 204 cases, revealing pseudoaneurysms in 120 cases (58.8%), pseudocysts in 46 cases (22.5%), pancreatic tumors in 15 cases (7.4%), peripancreatic artery aneurysms in 13 cases (6.4%), and pancreatic duct stones in 4 cases (2.0%). Among the 193 patients who underwent celiac artery angiography, 112 (58.0%) had positive results. The most common source of bleeding was the splenic artery (41.2%), followed by the gastroduodenal artery (16.7%), bleeding from the cyst wall (9.9%), and the pancreaticoduodenal artery (9.6%). Thirty-six patients opted for conservative treatment, 180 attempted interventional treatment, 147 (81.7%) achieving success, and 140 underwent surgical treatment. Nine patients chose other treatment modalities. Follow-up results for 218 patients showed that 197 cases (91.4%) had no recurrent bleeding, 13 cases (6.0%) suffered re-bleeding, and 5 cases (2.3%) died.

Conclusion: The diagnosis of HP is difficult and should be based on a comprehensive assessment, including medical history and clinical presentation. Repeated imaging examinations may be necessary to improve diagnostic accuracy. Treatment should primarily target the underlying cause with a multidisciplinary approach, and the treatment choice should be based on the clinical course of the disease.

Key words

Hemorrhage; Pancreatic Ducts; Aneurysm, False; Pancreatitis, Chronic

CLC number: R657.5

胰管出血 (hemorrhage of the pancreatic duct, HP) 是胰腺及胰周疾病所致的出血经主胰管通过 Vater 壶腹流向十二指肠降部, 极少数情况下, 出血经副胰管流向十二指肠小乳头^[1]。它是极为罕见的上消化道出血的原因, 发生率约占上消化道出血的 1/1 500^[2-3]。最常由慢性胰腺炎、胰周动脉瘤、胰腺肿瘤等疾病引起^[4], 也可由其他少见原因如内镜下逆行胆胰管造影术 (endoscopic retrograde cholangiopancreatography, ERCP)、假性囊肿引流术等医源性因素, 异位胰腺、胰腺分裂等先天性异常及胰腺外伤等导致^[5]。HP 在临床较为罕见, 一般无典

型的特征性表现, 且出血通常表现为间歇性^[6], 因此, 从最初的症状出现到精确识别出血源并建立病因学诊断, 往往需要较长的过程^[7]。目前 HP 尚缺乏公认的诊疗标准, 临床医师在诊断 HP 时经常会面临不少困惑, 且极易造成漏诊及误诊^[7-8]。因此, 本研究查阅并总结近 40 年公开发表关于 HP 的文献资料, 通过回顾性分析 HP 患者的临床特点, 进一步加深对 HP 的认识, 提高早期识别与诊断的能力, 旨在为临床规范诊疗策略方面提供一定的理论依据。

1 资料与方法

1.1 文献检索

以“Hemosuccus Pancreaticus” “Wirsumgorrhagia” “Hemowirsungia”为检索词分别在PubMed、Medline和Embase等数据库检索发表于1977年1月—2021年12月的文献。通过阅读全文，并检索纳入文章的参考文献，纳入所有包含HP原始病例的相关文献。剔除重复、数据不全、无法统计的病例，综述及荟萃分析（图1）。

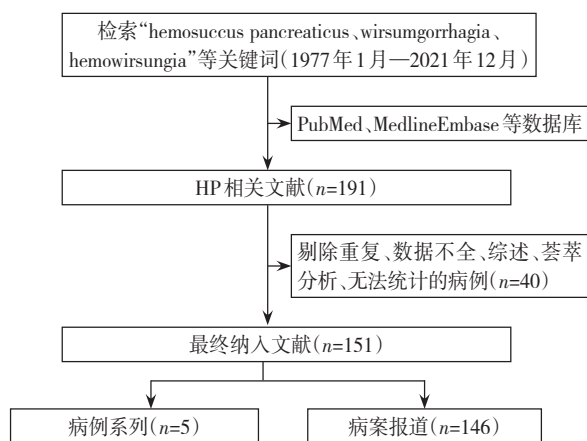


图1 文献检索流程图

Figure 1 Literature search process

1.2 指标收集及数据处理

统计纳入病例的性别、年龄、既往史、病因、临床表现、实验室检查、影像学检查、治疗及随访结果，建立Excel表格。计数资料采用频数及百分比 $[n(\%)]$ 表示。

2 结果

2.1 文献情况及患者分布

检索1977年1月—2021年12月关于HP的191篇文献，经筛选最终纳入文献共151篇，包含333例HP患者。其中较大病例系列如下：87例^[7]（2021年，印度）、51例^[4]（2013年，印度）、17例^[9]（2007年，法国）、9例^[10]（2005年，捷克）、8例^[11]（2000年，美国），其余均为病案报道。分析所纳入患者地域分布情况，发现HP在印度、美国、日本报道病例数较高，分别为152例（45.6%）、55例（16.5%）、36例（10.8%），其次为法国21例（6.3%）、西班牙和捷克均11例（3.3%）、中国和德国均10例（3.0%），其余国家均在10例以下。

2.2 患者一般资料与临床特征

333例HP患者中，男性267例（80.2%），女性66例（19.8%），男女比例约为4:1。平均年龄45.9（3~94）岁。其中109例患者既往有慢性胰腺炎病史，87例患者有长期饮酒史，4例患者因假性动脉瘤（3例）/动脉瘤（1例）既往行介入治疗。HP最常见的病因是胰腺炎，所纳333例患者中274例（82.3%）为胰腺炎（慢性胰腺炎244例、急性胰腺炎25例、复发性急性胰腺炎5例），其中酒精性胰腺炎162例、特发性胰腺炎30例、热带性胰腺炎27例、胆源性胰腺炎3例、家族性胰腺炎2例、外伤性胰腺炎1例、遗传性胰腺炎1例、原发性甲状旁腺功能亢进性胰腺炎1例，47例未提及胰腺炎病因。动脉瘤被认为是HP的第二大病因，333例患者中，20例（6.0%）为动脉瘤患者，其中脾动脉瘤18例（1例患者存在2个动脉瘤，分别来源于脾动脉的中部和尾部。1例患者存在3个动脉瘤，分别来源于脾动脉、腹腔干及肠系膜上动脉）、肠系膜上动脉瘤1例、肝总动脉瘤1例。胰腺肿瘤是HP的第三大病因，333例患者中，17例（5.1%）为胰腺肿瘤，其中胰腺癌7例、胰腺导管内乳头状肿瘤6例、胰腺黏液性囊性肿瘤2例、胰腺浆液性囊性肿瘤1例、胰头转移癌1例。其次是动静脉畸形6例（1.8%），医源性病因5例（1.5%），包括超声内镜下穿刺3例、ERCP+胰管支架植入2例。其他病因共11例（3.3%），分别是胰腺外伤3例、胰腺分裂2例、未明确病因2例、布鲁氏菌病1例、胰腺血肿1例、胰腺组织结节1例、胰腺单纯黏液囊肿1例。HP最常见的临床表现是消化道出血和腹痛，腹痛部位以上腹部为主。其中临床症状主要有黑便247例（74.2%）、腹痛179例（53.8%）、呕血83例（24.9%）、失血性休克症状38例（11.4%）、便血9例（2.7%）、呕血伴黑便7例（2.1%）。除此之外，仍有部分患者表现为乏力（9例，2.7%）、恶心（9例，2.7%）、黄疸（6例，1.8%）、腹部不适（2例，0.6%）、腰背部疼（2例，0.6%）、食欲不振（2例，0.6%）、发热（1例，0.3%）（表1）。

2.3 实验室检查

因纳入病例并未记录所有实验室检查，本组患者中血红蛋白降低270例（81.1%），其中以中度贫血为主，共135例（40.5%），此外，轻度贫血19例（5.7%）、重度贫血33例（9.9%）。61例（18.3%）

患者有明确输血史。血清淀粉酶升高15例(4.5%)、血脂肪酶升高13例(3.9%)、总胆红素升高5例(1.5%)、直接胆红素升高2例(0.6%)、丙氨酸氨基转移酶升高2例(0.6%)、碱性磷酸酶升高2例(0.6%)、谷氨酰转肽酶升高2例(0.6%)、血清白蛋白降低2例(0.6%)。

表1 333例HP患者基本临床特征

Table 1 The general clinical information of the 333 HP patients

特征	数值
性别[n(%)]	
男	267(80.2)
女	66(19.8)
年龄[岁,M(范围)]	45.9(3~94)
既往史[n(%)]	
慢性胰腺炎	109(32.7)
长期饮酒	87(26.1)
介入栓塞治疗	4(1.2)
输血需求[n(%)]	61(18.3)
入院时血流动力学不稳定[n(%)]	38(11.4)
症状[n(%)]	
黑便	247(74.2)
腹痛	179(53.7)
呕血	83(24.9)
失血性休克	38(11.4)
便血	9(2.7)
呕血伴黑便	7(2.1)
病因[n(%)]	
胰腺炎	274(82.3)
动脉瘤	20(6.0)
胰腺肿瘤	17(5.1)
动静脉畸形	6(1.8)
医源性	5(1.5)
胰腺外伤	3(0.9)
胰腺分裂	2(0.6)
未明确	2(0.6)
布鲁氏菌病	1(0.3)
胰腺血肿	1(0.3)
胰腺组织结节	1(0.3)
胰腺单纯黏液囊肿	1(0.3)

2.4 辅助检查

333例HP患者中,282例(84.7%)行上消化道内镜检查,其中90例(90/282,31.9%)提示乳头出血,明确诊断HP;67例(67/282,23.8%)患者提示胃或十二指肠腔内存在血液,但无法明确出血源;125例患者(125/282,44.3%)内镜检查正常,未见明确出血。共69例(69/192,35.9%)

接受进一步十二指肠镜检查,其中胃或十二指肠腔内存在血液患者18例(18/69,26.1%)、内镜检查正常患者51例(51/69,73.9%),其中50例(50/69,72.5%)患者明确诊断HP。140例(140/282,49.6%)可以经内镜检查明确诊断,包括90例(90/282,31.9%)患者经上消化道内镜及50例(50/69,72.4%)患者经进一步十二指肠镜检查明确。81例(24.3%)患者行腹部超声检查,结果提示:假性动脉瘤25例(25/81,30.9%)、假性囊肿14例(14/81,17.3%)、慢性胰腺炎8例(8/81,9.9%)、胰腺占位5例(5/81,6.2%)、胰周动脉瘤1例(1/81,1.2%)、急性胰腺炎1例(1/81,1.2%)。47例(14.1%)行ERCP检查,其中20例(20/47,42.6%)提示乳头出血诊断HP。10例(10/47,21.3%)患者显示胰管内血凝块。7例(7/47,14.9%)患者提示假性囊肿/假性动脉瘤与胰管之间存在瘘。20例(6.0%)患者行超声内镜检查,其中4例(4/20,20.0%)患者诊断HP,包括胰腺囊性肿瘤超声内镜引导下穿刺活检3例,ERCP+胰管支架植入术后1例(支架远端位于脾动脉内)。此外,超声内镜下还发现假性动脉瘤4例(4/20,20.0%)、胰周动脉瘤3例(3/20,15.0%)、慢性胰腺炎2例(2/20,10.0%)、假性囊肿1例(1/20,5.0%)。19例(5.7%)行腹部核磁共振成像检查,结果发现假性动脉瘤5例(5/19,26.3%)、胰腺肿瘤5例(5/19,26.3%)、动脉瘤4例(5/19,21.1%)、假性囊肿2例(2/19,10.5%),此外还发现急性胰腺炎、动静脉畸形、胰腺分裂、胰管内血凝块各1例(1/19,5.3%)。204例(61.3%)行腹部CT扫描,结果显示假性动脉瘤120例(120/204,58.8%)、假性囊肿46例(46/204,22.5%)、慢性胰腺炎40例(40/204,19.6%)、胰腺肿瘤15例(15/204,7.4%)、胰周动脉瘤13例(13/204,6.4%)、急性胰腺炎7例(7/204,3.4%)、胰管结石4例(4/204,2.0%)、胰管内血凝块1例(1/204,0.5%)。193例(58.0%)行腹腔相关动脉造影检查,其中112例(112/193,58.0%)显示阳性结果,包括假性动脉瘤97例(97/112,86.6%)、动脉瘤11例(11/112,9.8%)、胰腺肿瘤及假性囊肿侵蚀血管各2例(2/112,1.8%)。

2.5 治疗

36例(10.8%)选择保守治疗,其中19例(19/36,52.8%)经保守治疗后消化道出血停止,

8例(8/36, 22.2%)患者由于紧急情况接受手术治疗, 5例(5/36, 13.9%)患者放弃治疗, 4例(4/36, 11.1%)患者死亡。180例(54.1%)尝试了介入治疗, 147例(147/180, 81.7%)患者治疗成功, 33例(33/180, 18.3%)动脉栓塞失败, 其中24例(24/33, 72.7%)接受手术治疗, 5例(5/33, 15.2%)再次行动脉栓塞治疗, 3例(3/33, 9.1%)死亡, 1例(1/33, 3.0%)患者接受超声内镜引导下使用99%酒精穿刺注入假性动脉瘤。140例(42.0%)接受手术治疗, 包括108例(108/140, 77.1%)优先选择手术治疗患者、8例(8/140, 5.7%)保守治疗失败患者及24例(24/140, 17.1%)介入栓塞失败行手术治疗患者。手术方式主要包括以下几种: 以远端胰腺切除术为主67例(67/140, 47.9%) (其中43例伴脾切除术)、以胰十二指肠切除术为主30例(30/140, 21.4%) (其中5例行全胰十二指肠切除术)、以动脉瘤血管结扎术为主28例(28/140, 20%) (其中8例伴脾切除术)、以囊肿空肠/胃吻合术为主11例(11/140, 7.9%)、其他手术方式4例(4/140, 2.9%) (假性囊肿切除术1例、胰腺中段切除术1例、胰腺空肠吻合伴十二指肠乳头成形术1例、动脉瘤切除伴静脉移植术1例)。9例(9/140, 6.4%)采用其他治疗方式, 其中有7例选择ERCP治疗, 这7例患者中有4例接受胰管支架置入术, 2例使用纤维蛋白胶, 还有1例行小乳头局部治疗。此外超声内镜下治疗2例, 其中超声内镜引导下使用凝血酶、纤维蛋白胶和组织丙烯酸穿刺注入假性动脉瘤各1例, 其中1例患者死亡。

2.6 出血来源分布

结合患者所有辅助检查及手术治疗情况, 对333例患者出血来源进行细致的评估, 其中12例(3.6%)患者无法确认出血源, 余321例(96.4%)患者寻找到确定出血源共335处, 其中307例(307/321, 95.6%)患者为单一出血源, 14例(14/321, 4.4%)存在2个及以上出血源。其中来源于脾动脉的出血最多见, 共138处(138/335, 41.2%), 其次是胃十二指肠动脉56处(56/335, 16.7%)、囊壁出血33处(33/335, 9.9%)、胰十二指肠动脉32处(32/335, 9.6%)、胰腺肿瘤侵蚀17处(17/335, 5.1%)、肠系膜上动脉16处(16/335, 4.8%)、肝动脉9处(9/335, 2.7%)、胃左动脉7处(7/335, 2.1%)、胰周侧支4处(4/335, 1.2%)、腹腔干3处(3/335, 0.9%)、ERCP术后3处(3/335, 0.9%)、胰大动脉2处(2/335, 0.6%)、胰背动脉2处(2/335, 0.6%)、胃网膜右动脉2处(2/335, 0.6%)、间质瘤2处(2/335, 0.6%)、动静脉畸形2处(2/335, 0.6%)、胰管壁出血1处(0.3%)、胃网膜左动脉1处(0.3%)、左膈前动脉1处(0.3%)、胰内动脉1处(0.3%)、肠系膜上静脉1处(0.3%)、门静脉1处(0.3%)、脾静脉1处(0.3%)。

胰大动脉2处(2/335, 0.6%)、胰背动脉2处(2/335, 0.6%)、胃网膜右动脉2处(2/335, 0.6%)、间质瘤侵蚀2处(2/335, 0.6%)、动静脉畸形所致出血2处(2/335, 0.6%)、胰管壁出血、胃网膜左动脉、左膈前动脉、胰内动脉、肠系膜上静脉、门静脉及脾静脉各1处(1/335, 0.3%) (图2)。321例患者中, 12例(12/321, 3.7%)患者存在2处假性动脉瘤, 来源血管如下: 胃十二指肠动脉和胰十二指肠动脉5例、肠系膜上动脉和胰十二指肠动脉2例、肝动脉和胃十二指肠动脉2例、脾动脉和胰十二指肠动脉1例、腹腔干和肠系膜上动脉1例、脾动脉和肝动脉1例。1例(1/321, 0.3%)患者存在2处动脉瘤, 来源于脾动脉的中部和尾部。1例(1/321, 0.3%)患者存在3个动脉瘤, 来源于脾动脉、腹腔干、肠系膜上动脉。



图2 321例患者出血源分布图

Figure 2 Distribution of bleeding sources in 321 patients

2.7 随访结果

所纳研究中218例(65.5%)患者被记录了随访结果, 随访时间从1个月至11年不等, 197例(197/

218, 90.4%)患者无复发性出血。13例(13/218, 6.0%)患者再次出血,其中5例(5/13, 38.5%)行保守治疗,4例(4/13, 30.8%)行手术治疗,3例(3/13, 23.1%)行介入栓塞,1例(1/13, 7.7%)行ERCP下支架植入术。被随访患者中有3例患者出现腹痛,究其原因为假性囊肿2例及重症胰腺炎1例,2例假性囊肿患者分别行囊肿外引流术及假性囊肿-空肠吻合术,重症胰腺炎患者行保守治疗。5例患者死亡,病死率为2.3%。

3 讨论

HP是一种罕见的上消化道出血的原因,通常在胰腺或胰周疾病反复发作基础上发病,在临床上属于一种罕见病。于1931年由Lower和Farrell首次报道,后续在国内外也偶有报道。1970年由Sandholm^[12]报道了3例假性动脉瘤破裂导致的消化道出血后正式命名为Hemosuccus Pancreaticus。本研究总结HP患者的临床特征,旨在给临床医师带来新的思考与认识,同时为临床制定HP诊疗策略提供一定的理论依据。

本研究发现胰腺炎是HP最常见的病因,其中慢性胰腺炎占89.1%(244/274),酒精性胰腺炎占59.1%(162/274),这与饮酒是导致慢性胰腺炎的主要原因(约占65%)相关^[13-14],此外,研究^[15]证实过度饮酒可加速疾病的进展。胰腺假性动脉瘤、胰腺假性囊肿、胰管结石是这种不可逆的反复进行性慢性炎症过程恶化的结果,而HP的发生与胰腺慢性炎症的临床进程密切相关。可能涉及以下几种机制:(1)胰酶外渗侵蚀胰腺组织及胰周动脉,动脉壁弹力纤维断裂,管壁扩张形成假性动脉瘤,假性动脉瘤破裂进入胰管引起出血^[5];(2)假性囊肿内的囊液富含弹力蛋白纤维,包裹并侵蚀胰周动脉形成假性动脉瘤^[16-17]或假性囊肿壁血管破裂出血进入胰管;(3)胰管结石的慢性阻塞会加速胰腺炎进程,从而导致胰液腐蚀胰腺实质及胰管壁血管进而引起出血。除此之外,结石对胰管黏膜慢性机械性刺激是引起HP的另一种可能原因^[9]。胰腺假性动脉瘤形成并破裂出血是HP发生最主要的机制^[1, 18],其往往在胰腺炎的基础上形成并发展。有研究^[5]证实大约10%的慢性胰腺炎患者会形成假性动脉瘤,当假性动脉瘤在其特定的临床进程下形成后,进一步通过与胰管相通的特殊病理机制,最终表现为上消化道出血,这或许是HP在临床较

为罕见的原因。假性动脉瘤形成的其他少见病因包括创伤和医源性病因^[19],如ERCP、手术、经皮活检或引流^[20]。

部分研究^[1]认为,HP的临床特征包括上腹痛、消化道出血和高淀粉酶血症(血清淀粉酶水平升高)三联征。然而,本研究结果显示,仅15例(4.5%)出现血清淀粉酶升高。这或许提示,消化道出血和腹痛是HP患者更为常见的临床表现。前者主要表现为黑便、呕血或便血,由于出血通常是间歇性、反复性,故黑便比呕血更为常见^[3, 21-22]。本研究中53.75%(179/333)的患者出现腹痛,主要发生在上腹部。考虑疼痛可能系出血进入胰管或血凝块堵塞胰管产生胰管高压所致^[23],出血停止后腹痛可能持续存在^[18];随后,血凝块可能会在数小时至数天后溶解,导致胰管压力降低和腹痛缓解,然而,这可能会导致十二指肠乳头再次出血^[5]。因此,间歇性出血和腹痛交替出现,可能是这种疾病相对典型的临床特征。值得注意的是,本研究中仅11.4%(38/333)的患者存在不同程度失血性休克表现,需紧急干预。由此可见,尽管HP的出血通常来源于动脉,但由此导致患者严重血流动力学不稳定的发生率并不高^[24]。

内镜及影像学检查仍然是诊断HP的重要手段,包括上消化道内镜、增强CT、血管造影、ERCP在内的诊断方式^[21],具体应根据患者情况采用内镜与影像相结合方式进行个体化诊治。对所有上消化道出血患者均应行上消化道内镜检查,以排除其他常见出血原因^[25-26],如消化性溃疡、胃炎和十二指肠炎、食管胃底静脉曲张及上消化道肿瘤等,若镜下观察到乳头出血,可明确HP诊断。但是,由于出血的间歇性,初次检查通常很难观察到典型的表现,仅有约30%的患者可以通过内镜诊断^[27]。本研究中282例患者行上消化道内镜检查,仅31.9%(90/282)患者观察到乳头出血。对于胃或十二指肠腔内存在积血或高度怀疑HP的患者,应重复胃镜检查或进一步进行十二指肠镜检查以免漏诊。因此,反复、多次内镜检查是必要的,尤其在腹痛或出血时进行内镜检查,可能能够提高诊断的阳性率。本研究中69例患者接受进一步十二指肠镜检查,其中74.2%(50/69)患者明确诊断HP。49.6%(140/282)患者经内镜检查明确诊断。上腹部增强CT是显示胰腺及胰周疾病病理学特征极佳的方式^[28],通常表现为假性动脉瘤、胰腺假性囊肿、胰腺肿瘤、胰周动脉瘤以及

急或慢性胰腺炎等^[4]。对于内镜明确诊断或者高度怀疑HP的患者，寻找病因并了解潜在的出血机制尤为重要。胰管内血凝块（称为前哨血凝块）是HP患者较典型的影像学特征，但影像学检查很少观察到典型的表现，可能与出血的间歇性及影像学检查时机相关。本研究中仅3.6%（12/333）患者观察到此典型影像学特征，其中增强CT检查占0.5%（1/204）、增强MR占5.2%（1/19），ERCP占21.3%（10/47）。胰管造影或胰管成像可能有助于提高诊断率。作为一种诊断和治疗的手段，腹腔相关动脉造影对于寻找出血来源至关重要。本研究193例患者行腹腔相关动脉造影，58.0%（112/193）患者显示阳性结果，胰腺及胰周血管均为潜在的出血源。对于出血来源的判断需要注意以下两点：（1）通常是单个出血源，但本研究中4.4%（14/321）患者存在两处及以上出血源，应一并处置，避免遗漏导致再出血；（2）尽管出血通常来源于动脉，但本研究中0.9%（3/321）患者出血来源于静脉系统，因此，不应忽视静脉系统潜在出血的可能。

总体而言，HP的病死率为9.6%，一经诊断，均需积极处置，目前主要治疗方法以介入和手术治疗为主^[29]。保守治疗可为进一步检查及治疗提供基础生命支持，但单纯保守治疗并不能有效控制出血，患者病死率高达90%。对于血流动力学稳定的患者，介入治疗可作为初始选择方案^[22, 30]。本研究中180例患者尝试了介入治疗，81.7%（147/333）患者成功，与文献^[31-32]报道67%~100%的患

者通过介入治疗可取得良好效果的结论基本相符。介入治疗常用的方法是金属线圈栓塞和支架植入，介入栓塞后出血的复发率约30%。本研究中193例患者行腹腔相关动脉造影检查，其中42.0%的患者无法经介入造影明确出血来源，因此，外科手术是其主要的治疗手段。介入治疗已广泛应用于临床，但去除病因是治疗的关键，故不应忽视手术的重要性。然而，急性或慢性出血会使潜在的胰腺疾病复杂化，介入干预治疗可使部分患者明确出血源并稳定基本情况，为择期手术提供条件。外科手术的适应证不仅仅局限于血流动力学不稳定、介入治疗失败的患者。对于介入造影无法明确出血来源或存在其他手术适应证^[4]，如慢性胰腺炎及其并发症、幽门梗阻、梗阻性黄疸、胰腺肿瘤的患者，应保留进一步的手术治疗，并且需根据基础疾病的临床进程及患者基本状况选择合适的手术方式。外科手术后复发性出血风险为0%~5%^[33]。本研究中140例患者接受手术治疗，均未出现严重并发症。若患者一般状况良好，积极手术能够纠正出血的同时治疗胰腺及胰周疾病，具体方式取决于基础病变及出血位置，可以考虑以胰十二指肠切除或远端胰腺切除术为主的方式。若条件不允许，可以考虑以动脉瘤血管结扎或囊肿空肠/胃吻合为主的手术，当然择期手术可能也是一种选择。HP的诊断应遵循规范化流程，治疗应以针对病因为主导的综合治疗，根据疾病的临床进程选择恰当的治疗方式（图3）。

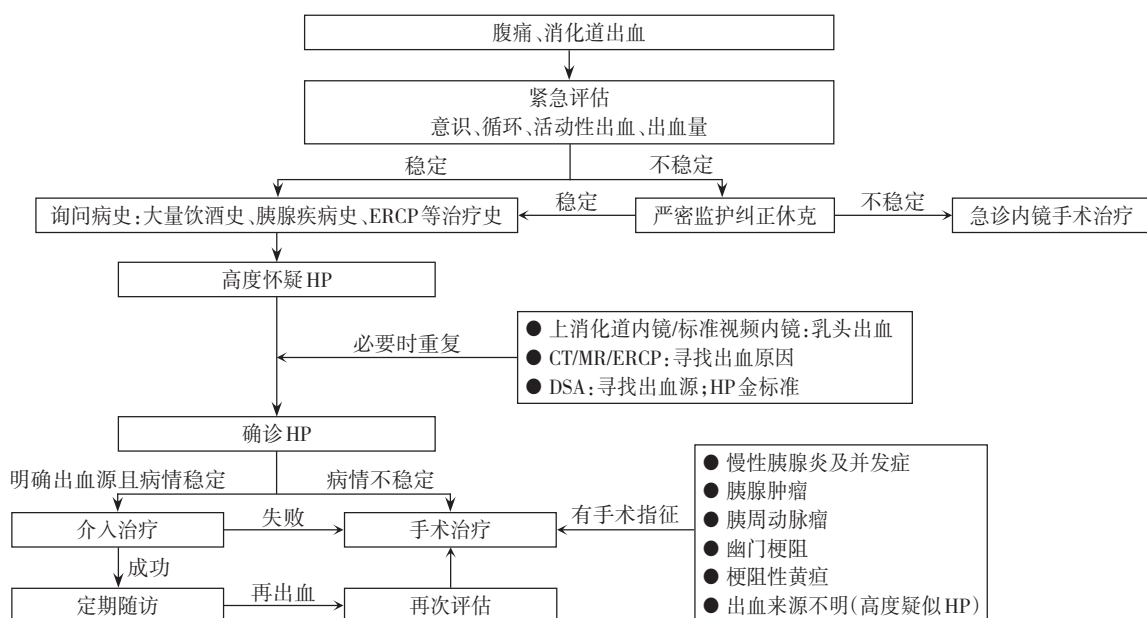


图3 HP诊断及治疗流程图

Figure 3 Diagnosis and treatment protocol for HP

综上所述,HP因其罕见性,临床确诊较为困难。目前的诊断尚缺乏统一标准,应结合病史、临床表现综合判断,必要时重复的影像学检查可以提高诊断率,治疗应是以针对病因为主导的综合治疗,根据疾病的临床进程选择恰当的治疗方式。

利益冲突:所有作者均声明不存在利益冲突。

作者贡献声明:王健、鲁建国负责酝酿和设计实验;王健、惠立良、段东峰负责实施研究、采集数据;王健、王成果、惠立良、鲁建国负责分析/解释数据;王健、王成果、惠立良、段东峰、鲁建国负责起草文章、统计分析;王健、王成果、鲁建国负责文章的知识性内容作批评性审阅;王成果、鲁建国负责获取研究经费、指导研究。

参考文献

- [1] Joshi A, Ca J, Gada LM, et al. Life-threatening upper gastrointestinal hemorrhage in hemosuccus pancreaticus: a case report[J]. *Cureus*, 2022, 14(4):e23934. doi: 10.7759/cureus.23934.
- [2] Saqib NU, Ray HM, Al Rstum Z, et al. Coil embolization of a ruptured gastroduodenal artery pseudoaneurysm presenting with hemosuccus pancreaticus[J]. *J Vasc Surg Cases Innov Tech*, 2020, 6(1):67-70. doi: 10.1016/j.jvscit.2019.11.014.
- [3] Long TB, Binh NT, Dung LV, et al. Diagnosis and treatment of hemosuccus pancreaticus induced by intraductal papillary mucinous neoplasm: a case report and review of the literature[J]. *Radiol Case Rep*, 2021, 16(10): 3099-3103. doi: 10.1016/j.radcr.2021.07.051.
- [4] Rammohan A, Palaniappan R, Ramaswami S, et al. Hemosuccus pancreaticus: 15-year experience from a tertiary care GI bleed centre[J]. *ISRN Radiol*, 2013, 2013: 191794. doi: 10.5402/2013/191794.
- [5] Tarar ZI, Khan HA, Inayat F, et al. Hemosuccus Pancreaticus: A Comprehensive Review of Presentation Patterns, Diagnostic Approaches, Therapeutic Strategies, and Clinical Outcomes[J]. *J Investig Med High Impact Case Rep*, 2022, 10: 23247096211070388. doi: 10.1177/23247096211070388.
- [6] Leshen M, Dadlani A, Ohene-Baah N. Severe Gastrointestinal Bleeding Due to Hemosuccus Pancreaticus in Chronic Pancreatitis Treated With Percutaneous Trans-splenic Embolization[J]. *ACG Case Rep J*, 2022, 9(1): e00739. doi: 10.14309/crj.0000000000000739.
- [7] Yashavanth HS, Jagtap N, Singh JR, et al. Hemosuccus Pancreaticus: A systematic approach[J]. *J Gastroenterol Hepatol*, 2021, 36(8):2101-2106. doi: 10.1111/jgh.15404.
- [8] Gupta K, Kably IM, Girotra M. Endoscopic Ultrasound-assisted Diagnosis of Obscure Gastrointestinal Bleeding [J]. *Cureus*, 2019, 11(9):e5581. doi: 10.7759/cureus.5581.
- [9] Lermite E, Regenet N, Tuech JJ, et al. Diagnosis and treatment of hemosuccus pancreaticus: development of endovascular management[J]. *Pancreas*, 2007, 34(2): 229-232. doi: 10.1097/MPA.0b013e31802e0315.
- [10] Etienne S, Pessaux P, Tuech JJ, et al. Hemosuccus pancreaticus: a rare cause of gastrointestinal bleeding[J]. *Gastroenterol Clin Biol*, 2005, 29(3):237-242. doi: 10.1016/s0399-8320(05)80755-9.
- [11] Sakorafas GH, Sarr MG, Farley DR, et al. Hemosuccus pancreaticus complicating chronic pancreatitis: an obscure cause of upper gastrointestinal bleeding[J]. *Langenbecks Arch Surg*, 2000, 385(2):124-128. doi: 10.1007/s004230050254.
- [12] Sandblom P. Gastrointestinal hemorrhage through the pancreatic duct[J]. *Ann Surg*, 1970, 171(1): 61-66. doi: 10.1097/0000658-197001000-00009.
- [13] Weiss F, Laemmerhirt F, Lerch M. Etiology and risk factors of acute and chronic pancreatitis[J]. *Visc Med*, 2019, 35(2): 73-81. doi: 10.1159/000499138.
- [14] Sadiq N, Gillani SW, Al Saeedy D, et al. Clinical review of acute, recurrent, and chronic pancreatitis: recent updates of 2013-2019 literature[J]. *J Pharm Bioallied Sci*, 2020, 12(2): 112-123. doi: 10.4103/jpbs.JPBS_313_19.
- [15] Law R, Parsi M, Lopez R, et al. Cigarette smoking is independently associated with chronic pancreatitis[J]. *Pancreatol*, 2010, 10(1): 54-59. doi: 10.1159/000225927.
- [16] Inayat F, Ali NS, Khan M, et al. Hemosuccus pancreaticus: a great masquerader in patients with upper gastrointestinal bleeding[J]. *Cureus*, 2018, 10(12):e3785. doi: 10.7759/cureus.3785.
- [17] Dávila Arias C, Ruiz-Rodríguez AJ, Cabrera Peña Á. Hematochezia secondary to hemosuccus pancreaticus due to a pseudoaneurysm associated with a pancreatic pseudocyst[J]. *Rev Esp Enferm Dig*, 2021, 113(8):618. doi: 10.17235/reed.2020.7376/2020.
- [18] Cui HY, Jiang CH, Dong J, et al. Hemosuccus pancreaticus caused by gastroduodenal artery pseudoaneurysm associated with chronic pancreatitis: a case report and review of literature[J]. *World J Clin Cases*, 2021, 9(1):236-244. doi: 10.12998/wjcc.v9.i1.236.
- [19] 余思佳, 刘小伟, 严璐, 等. 脾动脉瘤破裂致消化道出血1例报告并文献复习[J]. *中国普通外科杂志*, 2021, 30(12): 1495-1498. doi: 10.7659/j.issn.1005-6947.2021.12.014.
- Yu SJ, Liu XW, Yan L, et al. Gastrointestinal bleeding caused by rupture of splenic aneurysm: a case report and literature review[J]. *China Journal of General Surgery*, 2021, 30(12): 1495-1498. doi:

- 10.7659/j.issn.1005-6947.2021.12.014.
- [20] Flati G, Andrén-Sandberg A, La Pinta M, et al. Potentially fatal bleeding in acute pancreatitis: pathophysiology, prevention, and treatment[J]. *Pancreas*, 2003, 26(1):8-14. doi: 10.1097/00006676-200301000-00002.
- [21] Ru N, Zou WB, Qian YY, et al. A systematic review of the etiology, diagnosis, and treatment of hemosuccus pancreaticus[J]. *Pancreas*, 2019, 48(5):e47-49. doi: 10.1097/MPA.0000000000001278.
- [22] Sagalov A, Siddiqui H, Nida S, et al. An Atypical Presentation of Hemosuccus Pancreaticus Manifesting as Hematochezia[J]. *ACG Case Rep J*, 2022, 9(12): e00916. doi: 10.14309/crj.0000000000000916.
- [23] Yu P, Gong JP. Hemosuccus pancreaticus: a mini-review[J]. *Ann Med Surg (Lond)*, 2018, 28: 45-48. doi: 10.1016/j.amsu.2018.03.002.
- [24] Pezzulla D, Loi M, Suker M, et al. Two cases of Hemosuccus pancreaticus after stereotactic radiotherapy to the pancreas: a case study[J]. *Cancer Radiother*, 2020, 24(1): 60-63. doi: 10.1016/j.canrad.2019.09.003.
- [25] Kamboj A, Hoversten P, Leggett C. Upper gastrointestinal bleeding: etiologies and management[J]. *Mayo Clin Proc*, 2019, 94: 697-703. doi: 10.1016/j.mayocp.2019.01.022.
- [26] Singhai A, Manoria P, Bose R. Hemosuccus pancreaticus: culprit of life-threatening upper gastrointestinal bleeding in acute pancreatitis[J]. *J Emerg Trauma Shock*, 2021, 14(1): 48-50. doi: 10.4103/JETS.JETS_98_20.
- [27] Cardona JD, Beltrán Saavedra JA, Rueda M, et al. Getting closer to an underdiagnosed disease: hemosuccus pancreaticus, a rare cause of upper gastrointestinal bleeding[J]. *Cureus*, 2022, 14(10):e30837. doi: 10.7759/cureus.30837.
- [28] Moon SM, Paik KH, Kim JC, et al. A case report on the role of endoscopic retrograde cholangiopancreatography in the diagnosis of hemosuccus pancreaticus[J]. *Medicine (Baltimore)*, 2022, 101(45):e31561. doi: 10.1097/MD.00000000000031561.
- [29] Yoshida R, Yoshizako T, Maruyama M, et al. Hemosuccus pancreaticus successful treatment by double balloon-assisted coil embolization for active bleeding from the main trunk of the superior mesenteric artery[J]. *Radiol Case Rep*, 2018, 13(3):644-647. doi: 10.1016/j.radcr.2018.03.005.
- [30] Shnayder MM, Mohan P. Hemosuccus pancreaticus from superior mesenteric artery pseudoaneurysm within perceived pancreatic mass[J]. *Clin J Gastroenterol*, 2019, 12(1): 88-91. doi: 10.1007/s12328-018-0899-4.
- [31] Binetti M, Lauro A, Golfieri R, et al. False in Name only-gastroduodenal artery pseudoaneurysm in a recurrently bleeding patient: case report and literature review[J]. *Dig Dis Sci*, 2019, 64(11):3086-3091. doi: 10.1007/s10620-019-05853-7.
- [32] Bavanandam S, Dheivamani N. Hemosuccus pancreaticus[J]. *Indian Pediatr*, 2017, 54(2): 147-148. doi: 10.1007/s13312-017-1019-0.
- [33] Han B, Song ZF, Sun B. Hemosuccus pancreaticus: a rare cause of gastrointestinal bleeding[J]. *Hepatobiliary Pancreat Dis Int*, 2012, 11(5):479-488. doi: 10.1016/s1499-3872(12)60211-2.

(本文编辑 宋涛)

本文引用格式:王健,王成果,惠立良,等.1977—2021年文献333例胰管出血病例的临床特征分析[J].中国普通外科杂志,2023,32(9):1370-1378. doi:10.7659/j.issn.1005-6947.2023.09.010

Cite this article as: Wang J, Wang CG, Hui LL, et al. An analysis of the clinical characteristics of 333 cases of hemosuccus pancreaticus reported in the literature from 1977 to 2021[J]. *Chin J Gen Surg*, 2023, 32(9):1370-1378. doi:10.7659/j.issn.1005-6947.2023.09.010