DOI:10.16016/j.2097-0927.202402061

三例婴儿肝血管瘤伴高输出量心力衰竭的成功治疗与文献复习

杨 健[1],戴小科[2],张明满[2],熊 强[2] 402160 重庆,重庆市永川区妇幼保健院儿外科[1];400014 重庆,重庆医科大学附属儿童医院肝胆外科,国家儿童健康与疾病临床医学研究中心,国家儿童健康与疾病临床医学研究中心,儿童发育疾病研究教育部重点实验室,儿童代谢与炎症性疾病重庆市重点实验室[2]

[**摘要**] **目的** 总结婴儿肝血管瘤(infantile hepatic hemangioma, IHH)伴高输出量心力衰竭的临床特点、治疗方案以及治疗效果。**方法** 收集2020年10月至2023年10月在重庆医科大学附属儿童医院肝胆外科收治的3例婴儿肝血管瘤伴高输出量心力衰竭病例,并分析其病例特点、治疗方案和治疗效果。同时,通过中国知网、万方数据库和中华医学期刊全文数据库及PubMed数据库检索国内外报道的病例并进行分析总结。**结果** 3例患儿中,男性1例,女性2例,年龄分别为1 d、19 d和80 d,主要临床症状为呼吸急促和呼吸困难。所有患儿入院后迅速进展为呼吸衰竭、肺动脉高压和心力衰竭。诊断弥漫性IHH 2例,局灶性IHH 1例,其中1例弥漫性IHH接受了经皮肝动脉栓塞术的介入治疗,手术当天心肺功能恢复,并脱离呼吸机。另外2例患儿在使用普萘洛尔联合激素药物治疗后,估算右室收缩压和二尖瓣流量比在心脏彩超监测中最为敏感。文献复习共纳入24例患儿,其中4例治疗失败死亡,3例缓解,17例完全恢复。**结论** 普萘洛尔联合激素药物治疗以及经皮肝动脉栓塞术是治疗IHH伴高输出量心力衰竭的有效方法。通过估算右室收缩压和二尖瓣流量比进行血流动力学监测,可能是潜在的评估药物治疗效果的早期敏感指标。

[**关键词**] 婴儿肝血管瘤;心力衰竭;介入;普萘洛尔
[**中图法分类号**] R725.416;R726.573;R732.2 [**文献标志码**] A

Successful treatment of infantile hepatic hemangioma with high-output heart failure: report of 3 cases and literature review

YANG Jian[1], DAI Xiaoke[2], ZHANG Mingman[2], XIONG Qiang[2] [1]Department of Pediatric Surgery, Yongchuan District Maternal and Child Health Hospital, Chongqing, 402160; [2]Department of Hepatobiliary Surgery, National Clinical Research Center for Child Health and Disorders, Key Laboratory of Child Development and Disorders of Ministry of Education, Chongqing Key Laboratory of Pediatric Metabolism and Inflammatory Diseases, Children's Hospital of Chongqing Medical University, Chongqing, 400014, China

[**Abstract**] **Objective** To summarize the clinical characteristics, treatment regimen and clinical outcomes of infantile hepatic hemangioma (IHH) with high-output heart failure (HHF). **Methods** A retrospective analysis was conducted on 3 IHH infants with concomitant HHF admitted to the Children's Hospital of Chongqing Medical University during October 2020 and October 2023. The characteristics, treatment plans and efficacy were analyzed in the 3 cases. CNKI, WANFANG DATA, Chinese Medical Association Journal Full-text Database, and PubMed databases were retrieved to search domestic and foreign literature concerning the diseases, and the enrolled cases were analyzed and reviewed. **Results** Among the 3 infants, they were 1 male and 2 females, and aged 1 d, 19 d and 80 d, respectively. The main clinical symptoms were dyspnea and respiratory distress. All 3 patients rapidly progressed to respiratory failure,

[**基金项目**] 国家临床重点专科建设项目:国卫办医政函[2024]189号
[**通信作者**] 熊 强, E-mail: xiong537@163.com

2097-0927/Copyright © 2024, 陆军军医大学(第三军医大学)。这篇开放获取文章遵循 CC BY 许可协议(https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/)

pulmonary hypertension and heart failure after admission. Diffuse IHH was diagnosed in 2 cases and focal IHH in 1 case. One case of diffuse IHH underwent percutaneous hepatic artery embolization, and the cardiopulmonary function recovered on the day of surgery, and the ventilator was removed. In the other 2 cases, propranolol combined with steroid medication was used, and the estimated right ventricular systolic pressure and E wave to A wave mitral flow ratio (E/A) were the most sensitive indicators in echocardiographic monitoring. There were 24 cases included in literature review, with 4 cases of treatment failure and death, 3 cases of remission, and 17 cases of complete recovery. **Conclusion** Propranolol combined with steroid medication and percutaneous hepatic artery embolization are effective in treating IHH complicated with HHF. Right ventricular systolic pressure and E/A during drug therapy might be early sensitive marker for the early evaluation of potential therapeutic effects of drugs.

[**Key words**] infantile hepatic hemangioma; heart failure; intervention; propranolol

Supported by the Construction Project for National Clinical Key Specialties (2024-189). Corresponding author: XIONG Qiang, E-mail: xiong537@163.com

婴儿肝血管瘤(infantile hepatic hemangioma, IHH)是一种罕见的增殖性内皮细胞状的良性肿瘤。但如果IHH存在动静脉分流,可能会导致高达50%~60%的患者出现血容量增加和危及生命的高输出量心力衰竭(high-output heart failure, HHF)[1-2],并迅速进展导致呼吸衰竭、肾功能衰竭等严重后果[3]。这些并发症发生率相对较低但死亡率较高[2,4],给临床诊断及治疗带来极大挑战。目前,IHH的治疗主要依赖药物治疗和介入治疗。然而,药物治疗存在效果不确切、起效慢、副作用大等问题,甚至有可能引起血流动力学的恶化[5-6]。此外,目前缺乏敏感的血流动力学监测指标,使得评估药物治疗效果变得困难。介入治疗主要为经皮肝动脉栓塞术(transhepatic arterial embolization,TAE),适用于血流动力学不稳定甚至心力衰竭的患儿[7],但婴儿动脉细小,TAE手术难度大,因此仅有少量案例被报道。本研究报道了3例通过药物和介入的IHH伴HHF的成功案例,并回顾IHH伴HHF的既往研究报道,以总结治疗经验。

1 资料与方法

收集2020年10月至2023年10月在重庆医科大学附属儿童医院肝胆外科收治的3例IHH伴HHF的病例。纳入标准参照2020年中华医学会小儿外科学分会《小儿肝血管瘤诊断和治疗专家共识》,确诊标准为:①年龄在6个月以内;②临床表现为典型的肝肿大、充血性心力衰竭;③超声和增强CT有小儿肝血管瘤的典型特征;④心脏彩超证实有高输出量心力衰竭。

研究收集了患儿的临床资料,包括年龄、性别、主要临床表现、实验室检查结果、影像学检查结果。治疗方法包括药物治疗和介入治疗,药物治疗方案为普萘洛尔联合激素治疗,介入治疗为TAE术。所有患儿在治疗前后进行了心脏彩超监测,以评估心功能状态和治疗效果。本研究已经获得了重庆医科大学附属儿童医院伦理委员会的批准[(2024)年伦审(研)第(40)号]。

2 结果

2.1 临床资料总结

本研究共纳入3例患儿,男性1例,女性2例,发病年龄分别为1 d、19 d和80 d。诊断结果显示,2例患儿被诊断为弥漫性IHH,1例为局灶性IHH。首发临床症状主要表现为呼吸急促和呼吸困难。所有患儿在发病后迅速进展为呼吸衰竭、中重度肺动脉高压和心力衰竭。

2.2 实验室检查结果

实验室检查结果显示,所有患儿的B型脑钠肽(brain natriuretic peptide, BNP)水平显著升高,分别为>5 000.00、>1 403.00和>1 217.05 pg/mL。此外,患儿的肝功能、甲状腺功能和肾功能指标均出现不同程度的异常。

2.3 影像学检查结果

影像学检查包括X线片、肝脏彩超、心脏彩超和腹部CT。X线片显示心胸比增大,肝脏影增大。肝脏彩超和腹部CT显示肝脏肿大,肝内多发结节,提示肝血管瘤伴动静脉瘘。心脏彩超显示心脏各房室增大,二尖瓣和三尖瓣反流,以及重度肺动脉高压。3位患儿的心脏彩超中,术前估算右室收缩压(right ventricular systolic pressure, RVSP)和E波/A波二尖瓣流量比值(E wave to A wave mitral flow ratio, E/A)均提示明显异常,且在治疗后可以得到迅速改善。具体临床资料见表1。

表 1 肝血管瘤伴高输出量心力衰竭患儿主要临床资料

指标	病例 1	病例 2	病例 3
性别	女	女	男
年龄/d	80	19	1
体质量/kg	5.5	3.3	4.0
主要临床表现	咳嗽、呼吸困难、肝大	气促、发绀、呼吸困难、肝大	气促、肝大
合并症	甲状腺功能减退、急性肾衰竭	呼吸衰竭	呼吸衰竭、房间隔膨胀瘤
IHH 分类	弥漫性	弥漫性	局灶性
治疗方案	介入治疗	药物治疗	药物治疗
介入栓塞材料	明胶海绵颗粒、聚乙烯醇颗粒、弹簧圈	-	-
用药方案	-	普萘洛尔+甲泼尼龙	普萘洛尔+甲泼尼龙
心脏彩超结构改变	左房、左室、右房、右室增大,二尖瓣重度反流,三尖瓣中-重度反流,重度肺动脉高压	左房、左室增大,三尖瓣、二尖瓣轻-中度反流,中度肺动脉高压	房间隔膨胀瘤,三尖瓣、二尖瓣中度反流,中度肺动脉高压
治疗前 RVSP/mmHg	76	54	53
治疗前 E/A 值	-	二尖瓣单峰[a]	二尖瓣单峰[a]
治疗前 EF 值/%	57	57	62
心胸比	0.75	0.72	0.70
BNP/(pg/mL)	>5 000.00	>1 403.00	>1 217.05
治疗后 RVSP/mmHg	35	33	29
治疗后 E/A 值	-	0.83	1.10
治疗后 EF 值/%	64	66	67
治疗后撤离呼吸机时间/d	0.5	5.0	2.0
IHH 转归	好转	好转	好转
HHF 转归	治愈	治愈	治愈

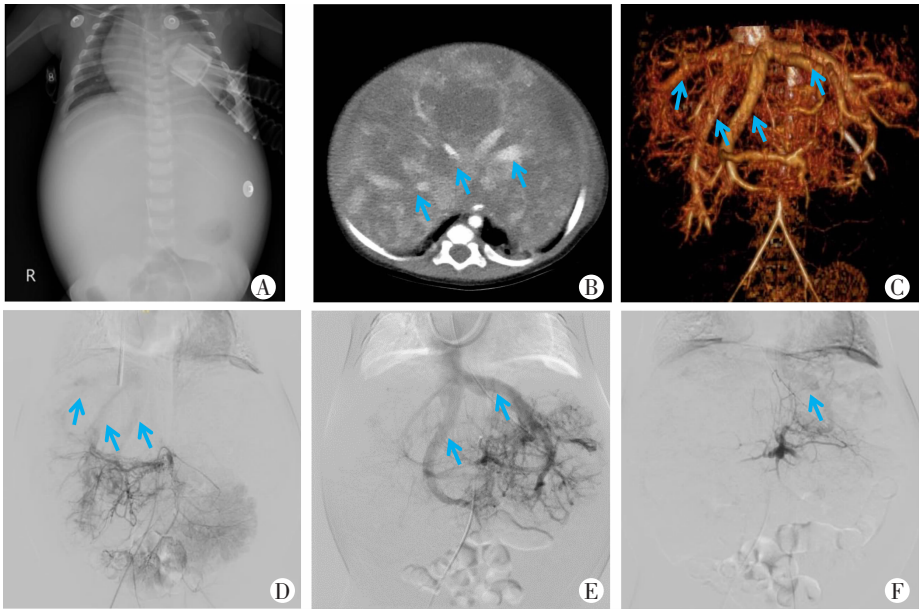
注:EF:射血分数;a:治疗前,因严重心功能衰竭,E 峰较高且 A 峰低,因此 E/A 表现为单峰

2.4 诊疗经过与转归

2.4.1 病例 1 1 名 80 d 的女婴因“呼吸困难半天”入院。体格检查:呼吸频率 68 次/min,心率 142 次/min,肝脏肋下可触及 10 cm。辅助检查:甲状腺功能减退,BNP 水平升高。胸部 X 线片显示心胸比例为 0.75,肝脏增大(图 1A)。肝脏彩超发现肝脏肿大,肝内多发低回声结节,伴肝动静脉瘘。心脏彩超提示心脏扩大,二尖瓣和三尖瓣反流,重度肺动脉高压。腹部 CT 显示肝脏肿大,肝内多发结节伴动静脉瘘(图 1B、C)。入院 4 d 后,患儿出现腹胀加重、呼吸衰竭、心力衰竭及肺动脉高压加重,接受了米力农、多巴胺、地高辛等药物治疗。主要临床资料详见表 1。

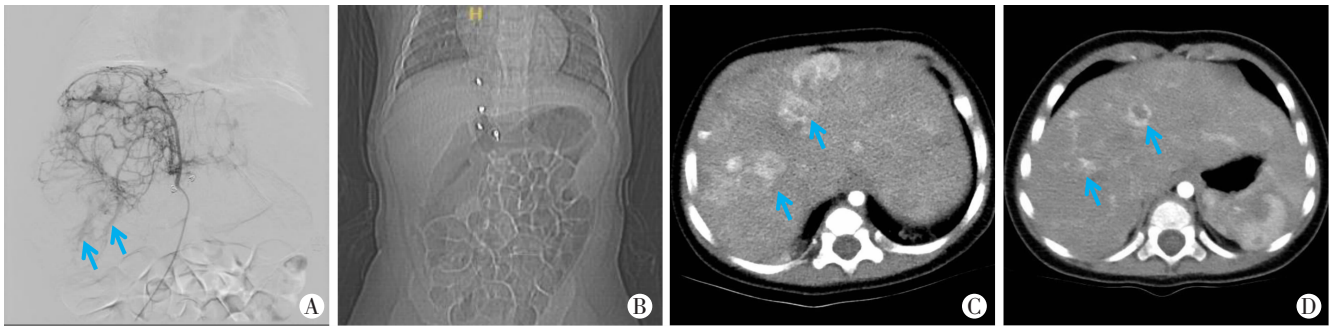
经过多学科讨论,患儿诊断为弥漫性 IHH 伴 HHF,药物治疗存在疗效不确定性和血流动力学恶化的风险,因此有介入手术的指征。在与患儿家长进行充分沟通并取得同意后,患儿在全麻下接受了 TAE 手术。术中 DSA 造影显示以左肝为主的肝内广泛动静脉瘘形成(图 1D、E),与图 C 影像特征吻合。术中用明胶海绵颗粒与聚乙烯醇颗粒左肝动脉进行了栓塞,手术结束时造影显示动静脉瘘明显改善(图 1F),提示治疗有效。手术当天,患儿血流动力学稳定,停用所有血管活性药物,并脱离呼吸机。术后 2 d 复查心脏彩超提示肺动脉高压缓解,RVSP 显著下降。术后 10 d 患儿腹胀加重、呼吸急促,再次接受介入治疗(图 2A)。术后患儿顺利恢复,加用普萘洛尔 5 mg 治疗残余病灶。术后 3 月复查心脏彩超显示心脏结构及参数恢复正常,术后 4 月 X 线片显示心脏、肝脏大小恢复正常(图 2B)。术后 4 月、10 月,复查肝脏 CT 提示患儿肝内残余少量病灶(图 2C、D)。

2.4.2 病例 2 1 名 19 d 的女婴因“气促、发绀、呼吸困难 4 d”入院。体格检查:呼吸频率 68 次/min,心率 178 次/min,肝脏肋下可触及 6 cm。辅助检查:BNP 水平升高。胸部 X 线片显示心胸比例为 0.72。肝脏彩超发现肝内多发异常回声结构,肝动脉增宽。心脏彩超提示肺动脉高压(中度),左心舒张功能降低,三尖瓣、二尖瓣轻-中度反流,二尖瓣频谱显示单峰。腹部 CT 显示肝脏增大,肝内多发结节伴动静脉瘘(图 3A)。患儿入院后因心力衰竭和肺动脉高压加重,接受了酚妥拉明、多巴胺和地高辛的治疗。诊断为弥漫性 IHH 伴 HHF,予普萘洛尔 5.4 mg 口服联合甲泼尼龙 3.3 mg 静脉输注,患儿的心肺功能迅速改善,用药 5 d 后脱离呼吸机。复查心脏彩超提示轻度肺动脉高压,二尖瓣频谱未再显示单峰,E/A 值为 0.83。用药后 2 月复查心脏彩超,显示所有参数恢复正常(表 1)。



A:术前 X 线片,心脏、肝脏增大;B、C:术前肝脏 CT 动脉期,肝静脉提前显影(箭头所示);D、E:介入术中,左、右肝动脉分别造影显示弥漫性动静脉瘘,肝静脉提前显影(箭头所示);F:介入术中、肝动脉栓塞结束后左肝动脉造影,肝静脉显影浅淡(箭头所示)

图 1 病例 1 术前影像和介入影像



A:第 2 次介入术中造影,显示右膈下动脉增粗,肝静脉提前显影(箭头所示);B:介入术后 4 月 CT 定位相,心脏、肝脏大小恢复正常;C:介入术后 4 月肝脏 CT,肝脏包块缩小(箭头所示);D:介入术后 10 月肝脏 CT,肝脏包块继续缩小(箭头所示)

图 2 病例 1 术后影像

2.4.3 病例 3 1 名 1 d 的男婴,因“气促 1 d”入院。体格检查:呼吸频率 58 次/min,心率 148 次/min,肝脏肋下可触及 5 cm。辅助检查:BNP 明显升高。胸部 X 线片显示心胸比例为 0.7,肝脏增大。肝脏彩超发现肝右叶巨大实质性病变(8.3 cm×8.0 cm×6.4 cm),肝右静脉扩张。心脏彩超提示房间隔膨胀瘤,三尖瓣、二尖瓣中度反流,中度肺动脉高压,二尖瓣频谱显示单峰。腹部 CT 显示肝右叶包块,伴动静脉瘘(图 3B)。患儿迅速出现呼吸衰竭和心力衰竭,给予氢氯噻嗪、螺内酯、多巴胺治疗。诊断为局灶性 IHH 伴 HHF,予普萘洛尔 4 mg 联合泼尼松龙 4 mg 口服治疗。用药 2 d 后,患儿成功脱离呼吸机,复查心脏彩超显示肺动脉高压恢复正常,E/A 比值为 1.1。经过 2 个月的治疗,复查肝脏包块的测量值较前缩小,心脏彩超检查结果恢复正常。

2.5 IHH 介入治疗文献复习资料

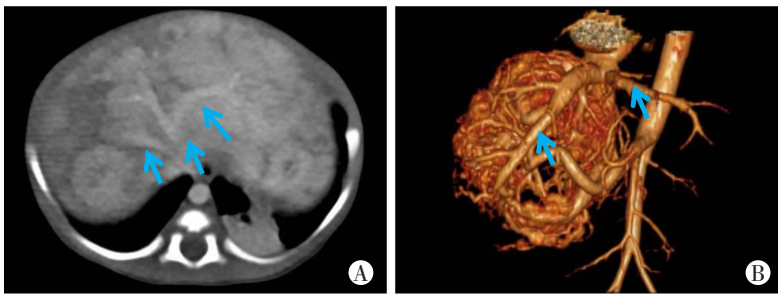
以“婴儿”、“肝血管瘤”、“心功能衰竭”、“肝动脉栓塞”为关键词检索中国知网、万方数据库和中华医学期刊全文数据库(建库至 2023 年 12 月)的文献,检索到 2 篇文献[8-9],共 4 例患儿。以“infantile hepatic hemangioma”、“high-output heart failure”、“transhepatic arterial embolization”为检索词在 Pubmed 数据库中进行检索(建库至 2023 年 12 月),检索到相关文献 6 篇[10-15],共 19 例患儿。结合研究中的病例 1,共收集了 24 例患儿的数据(表 2)。

在 IHH 介入治疗文献复习中,24 例患儿均为婴儿

期起病(1 d~7 个月),其中 14 例在新生儿期起病。疾病类型包括局灶性(11 例)、弥漫性(11 例)和多发性(2 例)。24 例患儿中,有 4 例治疗失败,死亡率 16.7%,发病年龄 5 d~1 个月,其余 20 例患儿中 17 例完全恢复,3 例缓解。在 1 个月及以下的患儿中,死亡率为 28.6%(4/14)。栓塞材料方面,有 14 例患儿使用了弹簧圈栓塞,其中 92.8%(13/14)的患儿得到恢复,其余患儿使用明胶海绵、聚乙烯醇颗粒、组织胶水、碘油等末梢栓塞剂,有 62.5%(5/8)患儿得到恢复。在药物治疗方面,17 例患儿接受激素治疗,3 例患儿接受普萘洛尔治疗,4 例患儿的药物治疗情况未提及。

3 讨论

小儿肝血管瘤包括 IHH 和先天性肝血管瘤。IHH 起病年龄从 1 d 到 3.5 岁不等[16]。IHH 具有随年龄变化的自然病程,包括增生期和消退期,其中在 3~9 岁期间症状可能完全消退[17],显示出良性肿瘤的特性。然而,大约 15%的患儿可能会出现 HHF 的严重并发症[18],其死亡率可高达 90%[16]。患有 HHF 和弥漫性病变的患儿死亡风险较高,需要积极治疗[3]。药物治疗、介入治疗和手术治疗是治疗 IHH 的有效方法,但是合并 HHF 的患儿,由于可能伴有严重的心肺功能衰



A:病例 2 肝内弥漫性包块,肝静脉提前显影(箭头所示);B:病例 3 右半肝巨大局灶性包块,肝静脉提前显影(箭头所示)

图 3 病例 2、病例 3 腹部增强 CT 动脉期图像

表 2 IHH 介入治疗文献复习资料

文献	年龄	性别	药物	分类	栓塞材料	结果
FOK 等[10]	1 d	男	激素	局灶性	弹簧圈	恢复
WARMANN 等[11]	2 d	未提及	激素	局灶性	弹簧圈	恢复
	1 个月	未提及	激素	局灶性	弹簧圈	恢复
	4 个月	未提及	激素、干扰素	局灶性	弹簧圈	缓解
	6 d	未提及	激素	局灶性	弹簧圈	恢复
DRAPER 等[12]	5 d	男	激素	局灶性	组织胶水	死亡
	4 个月	女	激素、长春新碱	弥漫性	聚乙烯醇颗粒、组织胶水	恢复
	3 个月	女	激素、干扰素	弥漫性	弹簧圈、明胶海绵和聚乙烯醇颗粒	恢复
	2 d	女	激素、干扰素	局灶性	聚乙烯醇颗粒	恢复
WANG 等[13]	5 个月	女	激素	弥漫性	弹簧圈	恢复
	19 d	女	激素	弥漫性	弹簧圈	死亡
WU 等[14]	0.6 个月	男	激素	多发性	弹簧圈、明胶海绵	恢复
	3 个月	女	激素	弥漫性	明胶海绵	恢复
	1 个月	男	未提及	局灶性	弹簧圈	恢复
	1 个月	男	未提及	局灶性	弹簧圈、明胶海绵	恢复
	2 个月	男	未提及	多发性	微球	缓解
	1 个月	女	普萘洛尔	局灶性	微球	死亡
	1 个月	女	激素	弥漫性	微球、明胶海绵	死亡
WANG 等[15]	4 月	男	未使用	弥漫性	碘油、平阳霉素、明胶海绵	恢复
沈晓霞等[9]	9 d	女	普萘洛尔	弥漫性	未提及	恢复
	7 d	女	普萘洛尔	弥漫性	未提及	恢复
汪周平等[8]	7 个月	女	激素	弥漫性	弹簧圈	部分缓解
	5 个月	男	激素	局灶性	弹簧圈	恢复

竭,治疗方案的选择和评估变得极为困难。

本研究中,2 例患儿通过口服普萘洛尔联合糖皮质激素治疗,心肺功能迅速恢复,这表明在 IHH 合并 HHF 的患儿中,该方案具有良好的临床效果。普萘洛尔被认为是 IHH 治疗的首选用药[19],糖皮质激素治疗用于普萘洛尔治疗效果不佳的患儿[4],但是药物治疗仍存在一些争议。IHH 患儿合并 HHF 发生机制与病变中的动静脉分流有关[20],该病变可诱发容量超负荷的恶性循环,而导致严重的心肺功能衰竭。这种机制可能导致循环系统[21]、肾素-血管紧张素-醛固酮系统[22]、通气和气体交换系统[13]以及其他包括血液系统、甲状腺功能等多个系统的严重损害[23]。因此也有研究认为,在严重的高输出量心力衰竭的情况下,普萘洛尔可能会进一步降低心肌功能,导致血流动力学恶化[2]。此外,药物治疗 IHH 存在起效慢[3]和缺乏药物治疗效果监测指标的问题,因此在用药过程中存在较多不确定性。

本研究通过治疗前后多次心脏超声评估发现,RVSP 和 E/A 值可以在用药后迅速恢复,且先于其它指标。RVSP 是临床广泛应用的无创监测肺动脉压力的监测参数,E/A 代表二尖瓣口快速充盈期与心房收缩期血流的比值,可反映二尖瓣反流和容量超负荷状态[24],均可作为 HHF 诊断和监测的敏感参数。因此,可以推测 RVSP 和 E/A 值可用于用药早期的血流动力学监测。

本研究中,病例 1 在 TAE 术后多器官功能衰竭迅速恢复,显示了介入治疗见效快的特点。既往研究建议解剖性肝切除作为可以进行手术的情况下的最终治疗[25]。由于 IHH 患儿年龄小,介入操作难度较大,限制了该技术用应用。然而,介入治疗可以迅速减少动静脉分流,是纠正 HHF、缓解临床症状的关键[13],TAE 术后 1~4 d 内可使临床症状迅速改善[24,26]。此外,介入治疗还可为等待肝移植的 IHH 患儿争取等待时间[13]。因此在具有成熟的儿童介入中心的医疗机构,介入治疗是 IHH 合并危重 HHF 患儿的治疗选择。

从回顾资料表明,TAE 治疗 IHH 的病例中,新生儿期死亡率为 28.6%,高于大龄患儿,提示年龄可能与预后有关。由于患儿年龄小,TAE 治疗操作难度大,手术时间延长等多种因素导致预后不良。因此有必要技术成熟儿童介入专业、新生儿专业、重症医学专业以及影像专业等进行多学科联合诊治[11],制定完善的介入手术时机、手术方案以及围手术期护理策略等个性化治疗方案,提高治疗成功率。

本研究的不足:①本研究样本量小,无法全面反映 IHH 伴 HHF 患儿的临床特征和治疗反应,治疗方案和手术时机选择需更多研究支持;②尽管药物治疗是 IHH 的首选,但对其血流动力学影响、效果监测和并发症的认识不足,需要更多高质量研究以优化治疗策略,提高安全性和有效性;③本研究中病例的随访时间较短,无法全面评估 IHH 的长期治疗效果。

综上所述,IHH 可能诱发高严重的 HHF,是一种罕见但病情严重的疾病,对于年龄 1 个月及以下的患儿可能有更高的危险性。本研究中 3 例病例为这一领域增添了新的成功治疗临床实例。RVSP 和 E/A 值在 IHH 的诊断和治疗中,可作为监测血流动力学的敏感指标,有助于早期评估药物疗效。TAE 是治疗婴儿肝血管瘤并发心力衰竭的有效快速方法。因此,需对 IHH 合并 HHF 的患儿实施多学科综合治疗策略,对治疗方案、治疗时机以及疗效监测等多个关键因素进行全面评估,以期最大限度地提高治疗效果。

参考文献:

[1] ZAVRAS N, DIMOPOULOU A, MACHAIRAS N, *et al*. Infantile hepatic hemangioma: current state of the art, controversies, and perspectives[J]. Eur J Pediatr, 2020, 179(1): 1-8. DOI: 10.1007/s00431-019-03504-7.

[2] JOSEPH J, WAIN T. Infantile haemangiomas: Identifying high-risk lesions in primary care[J]. Aust J Gen Pract, 2021, 50(12): 887-892. DOI: 10.31128/AJGP-01-21-5815.

[3] RIALON K L, MURILLO R, FEVURLY R D, *et al*. Risk factors for mortality in patients with multifocal and diffuse hepatic hemangiomas[J]. J Pediatr Surg, 2015, 50(5): 837-841. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2014.09.056.

[4] SPEICHER M V, LIM D M, FIELD A G, *et al*. An unusual case of neonatal high-output heart failure: infantile hepatic hemangioma[J]. J Emerg Med, 2021, 60(1): 107-111. DOI: 10.1016/j.jemermed.2020.10.008.

[5] DOTAN M, LORBER A. Congestive heart failure with diffuse neonatal hemangiomatosis: case report and literature review[J]. Acta Paediatr, 2013, 102(5): e232-e238. DOI: 10.1111/apa.12184.

[6] TAL R, DOTAN M, LORBER A. Approach to haemangiomatosis causing congestive heart failure[J]. Acta Paediatr, 2016, 105(6): 600-604. DOI: 10.1111/apa.13359.

[7] 中华医学会小儿外科学分会肝胆外科学组, 中华医学会小儿外科学分会肿瘤学组. 小儿肝血管瘤诊断和治疗专家共识[J]. 中华小儿外科杂志, 2020, 41(11): 963-970. DOI: 10.3760/cma.j.cn421158-20200228-00124.
Section of Hepatobiliary Surgery, Branch of Pediatric Surgery, Chinese Medical Association; Section of Oncology, Branch of Pediatric Surgery, Chinese Medical Association. Expert consensus on diagnosing and treating hepatic hemangioma in children[J]. Chin J Pediatr Surg, 2020, 41

(11): 963 - 970. DOI: 10.3760/cma.j.cn421158-20200228-00124.

[8] 汪周平, 黄萍, 张丽, 等. 以心力衰竭为主要表现的婴儿型肝血管内皮细胞瘤4例并文献复习[J]. 中华实用儿科临床杂志, 2016, 2(19): 1471-1474.
WANG Z P, HUANG P, ZHANG L, *et al*. Infantile hepatic hemangioendothelioma with heart failure as the main manifestation: a report of 4 cases and literature review[J]. Chin J Appl Clin Pediatr, 2016, 2(19): 1471-1474.

[9] 沈晓霞, 杜立中, 施丽萍, 等. 婴儿型肝血管内皮细胞瘤并发新生儿持续肺动脉高压三例[J]. 中华儿科杂志, 2017, 55(7): 547-548. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0578-1310.2017.07.017.
SHEN X X, DU L Z, SHI L P, *et al*. Infantile hepatic hemangioendothelioma complicated with persistent pulmonary hypertension in neonates: a report of three cases[J]. Chin J Pediatr, 2017, 55(7): 547-548. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0578-1310.2017.07.017.

[10] FOK T F, CHAN M S, METREWELI C, *et al*. Hepatic haemangioendothelioma presenting with early heart failure in a newborn: treatment with hepatic artery embolization and interferon[J]. Acta Paediatr, 1996, 85(11): 1373-1375. DOI: 10.1111/j.1651-2227.1996.tb13930.x.

[11] WARMANN S, BERTRAM H, KARDORFF R, *et al*. Interventional treatment of infantile hepatic hemangioendothelioma[J]. J Pediatr Surg, 2003, 38(8): 1177-1181. DOI: 10.1016/s0022-3468(03)00325-7.

[12] DRAPER H, DIAMOND I R, TEMPLE M, *et al*. Multimodal management of endangering hepatic hemangioma: impact on transplant avoidance: a descriptive case series[J]. J Pediatr Surg, 2008, 43(1): 120-125; discussion126. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2007.09.030.

[13] WANG T, WANG Y B, LIANG Y, *et al*. Infantile hepatic hemangioendothelioma associated with congestive heart failure: two case reports with different outcomes[J]. Medicine, 2015, 94(52): e2344. DOI: 10.1097/MD.0000000000002344.

[14] WU L, ZHAO L, LU Y, *et al*. Interventional embolization of congenital intrahepatic shunts in children[J]. Pediatr Radiol, 2016, 46(4): 541-547. DOI: 10.1007/s00247-015-3497-3.

[15] WANG L, SONG D, WU C H, *et al*. Infantile hepatic hemangioendothelioma associated with pulmonary artery hypertension and cardiac insufficiency successfully treated with transcatheter arterial embolization and propranolol: a case report[J]. Medicine, 2020, 99(24): e20728. DOI: 10.1097/MD.0000000000020728.

[16] ZHANG X T, REN W D, SONG G, *et al*. Infantile hepatic hemangiomas associated with high-output cardiac failure and pulmonary hypertension[J]. BMC Cardiovasc Disord, 2019, 19(1): 216. DOI: 10.1186/s12872-019-1200-6.

[17] 刘莹华. 小儿肝血管瘤的分类及诊治进展[J]. 中华小儿外科杂志, 2014, 35(12): 949-952. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0253-3006.2014.12.016.
LIU Y H. Progress in classification, diagnosis and treatment of hepatic hemangioma inchildren[J]. Chin J Pediatr Surg, 2014, 35(12): 949-952. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0253-3006.2014.12.016.

[18] SELBY D M, STOCKER J T, WACLAWIW M A, *et al*. Infantile hemangioendothelioma of the liver[J]. Hepatology, 1994, 20(1 Pt 1): 39-45. DOI: 10.1016/0270-9139(94)90132-5.

[19] RAY G, DAS K, SARKAR A, *et al*. Propranolol monotherapy in multifocal/diffuse infantile hepatic hemangiomas in Indian children: a case series[J]. J Clin Exp Hepatol, 2023, 13(4): 707-712. DOI: 10.1016/j.jceh.2023.02.005.

[20] LORD D J E, CHENNAPRAGADA S M. Embolization in neonates and infants[J]. Tech Vasc Interv Radiol, 2011, 14(1): 32-41. DOI: 10.1053/j.tvir.2010.07.003.

[21] REDDY Y N V, MELENOVSKY V, REDFIELD M M, *et al*. High-output heart failure: a 15-year experience[J]. J Am Coll Cardiol, 2016, 68(5): 473-482. DOI: 10.1016/j.jacc.2016.05.043.

[22] ANAND I S. High-output heart failure revisited[J]. J Am Coll Cardiol, 2016, 68(5): 483-486. DOI: 10.1016/j.jacc.2016.05.036.

[23] YANG K Y, PENG S H, CHEN L W, *et al*. Efficacy of propranolol treatment in infantile hepatic haemangioma[J]. J Paediatr Child Health, 2019, 55(10): 1194-1200. DOI: 10.1111/jpc.14375.

[24] PATEL H, DESAI M, TUZCU E M, *et al*. Pulmonary hypertension in mitral regurgitation[J]. J Am Heart Assoc, 2014, 3(4): e000748. DOI: 10.1161/JAHA.113.000748.

[25] DALLER J A, BUENO J, GUTIERREZ J, *et al*. Hepatic hemangioendothelioma: clinical experience and management strategy[J]. J Pediatr Surg, 1999, 34(1): 98-105; discussion 105-106. DOI: 10.1016/s0022-3468(99)90237-3.

[26] SONDHI V, KURKURE P A, VORA T, *et al*. Successful management of multi-focal hepatic infantile hemangioendothelioma using TACE/surgery followed by maintenance metronomic therapy[J]. BMJ Case Rep, 2012, 2012: bcr1220115456. DOI: 10.1136/bcr.12.2011.5456.

(收稿:2024-02-22;修回:2024-06-28)
(编辑 邓强庭)