

Ca lâm sàng / Case report

Ca lâm sàng: Loét hạ họng do bệnh Crohn biến chứng chảy máu nặng gây sốc mất máu được can thiệp nút mạch bằng spongel thành công

Case study: Crohn disease with hemorrhagic shock from hypopharyngeal ulcers bleeding: successful control by arterial embolization with gelatin sponge

LỖ THỊ YẾN, NGUYỄN HOÀI NAM, HOÀNG VĂN CHƯƠNG, NGUYỄN THU HIỀN, NGUYỄN CÔNG LONG, VŨ TRƯỜNG KHANH

Bệnh viện Bạch Mai

Abstract

*Crohn disease (CD) is an autoimmune condition that affects the gastrointestinal tract, extending from the mouth to the anus [1]. Although gastrointestinal bleeding is a possible complication of CD, oropharyngeal lesions causing severe hemorrhage are relatively rare. While transoral interventions have traditionally been used for the treatment of severe bleeding, endovascular interventions are an important adjunct when other techniques are unsuccessful. We present a case of a 21-year-old female with a history of CD but failed to comply with the treatment. She was admitted to the hospital with 2 weeks of a sore throat, occasional bright red blood spurts, and diarrhea. After 1 week of treatment with methylprednisolone, Azathioprine, and antibiotics, the patient spontaneously hemorrhaged approximately 2000 ml from her oropharynx and rapidly became hemodynamically unstable. The patient was then treated with endotracheal intubation, blood transfusion, fluid resuscitation, and local meche packing with adrenaline to stop bleeding but it was unsuccessful. Once the patient was stabilized, an emergent angiography demonstrated active bleeding from the right lingual artery, and the right pharyngeal mucosa had hypervascularity from the ascending pharyngeal artery. We then performed a gelatin sponge arterial embolization of the right lingual artery and the left pharyngeal artery, which immediately halted the hemorrhage. **Conclusion:** In the case of patient with Crohn disease massive bleeding due to ulceration of the hypopharynx, embolization with gelatin sponge is an effective intervention method that can be applied to stop bleeding.*

Keywords: Crohns disease, hypopharyngeal ulcer, gelatin sponge arterial embolization.

Tóm tắt

Bệnh Crohn (CD) là một bệnh lý tự miễn gây tổn thương đường tiêu hóa từ miệng đến hậu môn [1]. Xuất huyết tiêu hoá là biến chứng có thể gặp ở CD, nhưng tổn thương vùng hầu họng gây chảy máu mức độ nặng thì khá hiếm gặp. Các biện pháp can thiệp cầm máu qua đường miệng được sử dụng ban đầu để điều trị xuất huyết nặng, tuy nhiên nếu không thành công thì can thiệp nội mạch

là một giải pháp được đặt ra tiếp theo. Chúng tôi trình bày một trường hợp bệnh nhân nữ 21 tuổi, có tiền sử bệnh Crohn nhưng tự bỏ điều trị, vào viện vì biểu hiện đau họng, khạc máu đỏ tươi thỉnh thoảng số lượng ít và tiêu chảy 2 tuần. Sau 1 tuần điều trị bằng methylprednisolon, Azathioprine, kháng sinh, bệnh nhân đột ngột nôn ra khoảng 2000 ml máu từ hầu họng, huyết áp không đo được. bệnh nhân được xử trí đặt ống nội khí quản, truyền máu, bù dịch, nhét meche tẩm adrenalin cầm máu nhưng không thành công. Sau khi huyết động bệnh nhân tạm ổn định, chụp mạch cấp cứu cho thấy hình ảnh thoát thuốc hoạt động từ động mạch lưỡi phải, vùng niêm mạc vòm bên phải có tăng sinh mạch cấp máu từ động mạch hầu lên. Bệnh nhân đã được nút động mạch lưỡi bên phải và hầu bên trái bằng spongel, kết quả cầm máu thành công. Bệnh nhân được điều trị lại CD bằng corticoid, AZA và hiện tại, sau 2 tháng, bệnh nhân tăng cân và không chảy máu tái phát từ vùng hầu họng. **Kết luận:** Ở trường hợp bệnh nhân Crohn có biến chứng hiểm gặp chảy máu mức độ nặng do loét vùng hạ họng, can thiệp nút mạch bằng spongel là một phương pháp can thiệp hiệu quả có thể áp dụng để cầm chảy máu.

Từ khóa: Bệnh Crohn, loét hạ họng, nút mạch bằng spongel.

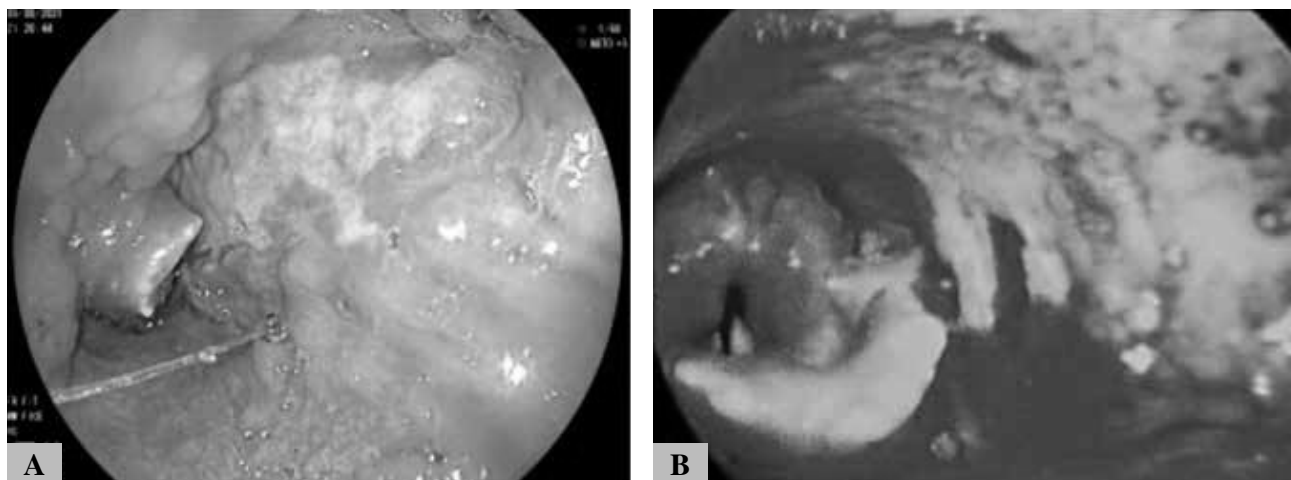
I. Đặt vấn đề

Bệnh Crohn (Crohn disease - CD) là bệnh viêm mạn tính niêm mạc ruột qua trung gian miễn dịch chưa rõ nguyên nhân. Đặc trưng của bệnh là viêm loét xuyên thành và có thể xảy ra ở bất cứ vị trí nào của đường tiêu hóa từ miệng đến hậu môn [1]. Biến chứng thường gặp của bệnh gồm hẹp, rò và xuất huyết tiêu hóa. Biến chứng xuất huyết tiêu hóa có thể gặp từ 0.9 - 2.5%, nhưng xuất huyết tiêu hóa mức độ nặng, cấp tính gây biến chứng sốc mất máu ít gặp [2]. Một số trường hợp xuất huyết tiêu hóa đã được can thiệp cầm máu thành công bằng nút mạch chọn lọc và siêu chọn lọc [2]. Tổn thương vùng miệng họng do CD gây chảy máu ồ ạt thì càng hiếm hơn và đây là một thách thức trong chẩn đoán và điều trị. Chúng tôi báo cáo trường hợp bệnh nhân (BN) bị CD có biến chứng sốc mất máu do chảy máu từ tổn thương loét hạ họng đã được cầm máu thành công bằng can thiệp mạch.

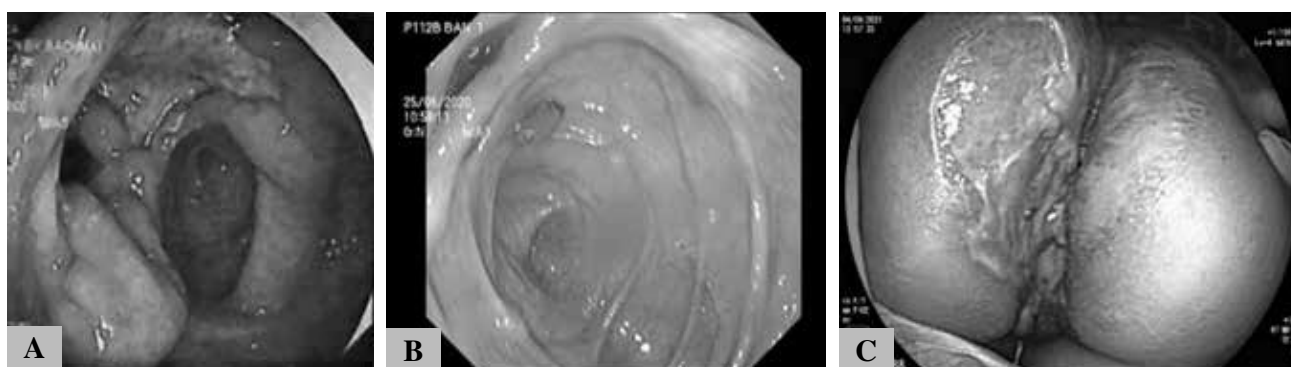
II. Ca lâm sàng

BN nữ 21 tuổi tiền sử loét miệng họng tái diễn, loét đại tràng tháng 7/2018. BN được chẩn

đoán CD dựa trên hình ảnh nội soi, sinh thiết các ổ loét ở manh tràng và quanh hậu môn. BN được điều trị tấn công bằng methyl prednisolon và duy trì lui bệnh trên lâm sàng và nội soi bằng azathioprine 150 mg/ngày, nhưng sau 1 năm BN tự dừng thuốc. Trước vào viện 2 tuần BN đau họng, buồn nôn, thỉnh thoảng khạc ra máu đỏ tươi, hoa mắt chóng mặt, phân vàng lỏng 2 lần/ngày, sút 3 kg/tháng. Khám lâm sàng BN tỉnh, da niêm nhợt, thể trạng trung bình, không loét ở khoang miệng, có loét lớn quanh hậu môn. Xét nghiệm máu thấy số lượng hồng cầu 3.16 T/L, huyết sắc tố 91 g/l, bạch cầu 12.2 G/L, máu lắng 1h/2h: 19/38 mm, protein 57 g/l, albumin 32 g/l, CRPhs 0,68 mg/dl. Nội soi dạ dày có nhiều máu đen chảy từ hạ họng, nội soi tai mũi họng vùng hạ họng thành bên họng trái ngang mức sụn nắp có loét rộng phủ giả mạc trắng (Hình 1-A). Nội soi đại tràng sigma quanh hậu môn và tăng sinh môn có loét rộng, không thấy lỗ rò (Hình 2-C). BN được điều trị methylprednisolon 60 mg/ngày, azathioprine 100 mg/ngày tình trạng đau họng và khạc máu giảm, đại tiện phân khuôn 1 lần/ngày.



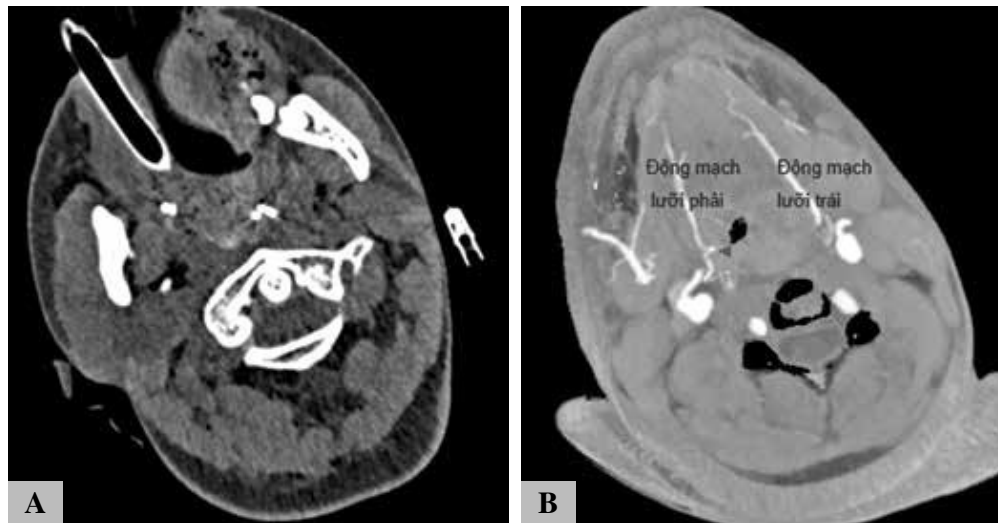
Hình 1: Bệnh Crohn: (A) Loét lớn hạ họng; (B) Động máu ở xoang lê



Hình 2: (A) Loét lớn manh tràng tại thời điểm chẩn đoán (tháng 7/2018); (B) Đã liền tổn thương (tháng 6/2020); (C) Loét lớn quanh hậu môn khi tái phát (tháng 8/2021)

Ngày thứ 7 sau khi điều trị, BN đột ngột khạc ra máu cục lẫn máu đỏ tươi số lượng nhiều. BN đã được nội soi tai mũi họng cấp thấy thành bên họng và hạ họng có nhiều vết loét phủ giả mạc, xoang lê bên trái đọng nhiều máu đỏ tươi, không quan sát thấy điểm chảy máu (Hình 1-B). BN được xử trí thở oxy kính, truyền dịch, tuy nhiên tình trạng chảy máu vẫn tiếp diễn, tổng số lượng máu mất ra ngoài nhìn thấy được khoảng 2 lít, BN rơi vào tình trạng mạch nhanh nhỏ > 120 lần/phút, huyết áp ngoại vi khó đo, ý thức lơ mơ. Chúng tôi đã

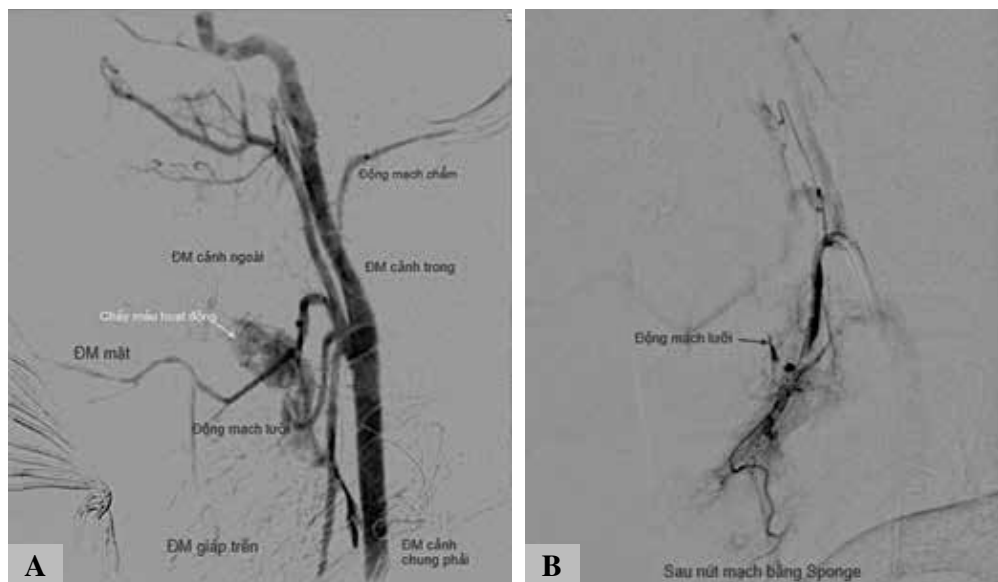
tiến hành đặt nội khí quản để bảo vệ đường thở rồi nhét meche tẩm adrenalin, truyền cấp 1400 ml khối hồng cầu. Sau khi kiểm soát được tình trạng rối loạn huyết động, BN được chụp cắt lớp vi tính mạch vùng cổ để tìm điểm thoát thuốc. Kết quả thấy có hình ảnh thoát thuốc, vị trí chảy xuất phát từ động mạch lưỡi, một nhánh tách ra từ động mạch cảnh ngoài bên phải. Vùng niêm mạc vòm bên phải có tăng sinh mạch cấp máu từ động mạch hầu lên từ động mạch cảnh ngoài bên trái (Hình 3).



Hình 3: (A) Tăng tỉ trọng (chảy máu) ở lớp niêm mạc hầu (mũi tên);
(B) Vị trí chảy máu xuất phát từ động mạch lưỡi phải (mũi tên)

Để kiểm soát chảy máu qua đường nội mạch, BN đã được đặt sheath 6F vào động mạch đùi chung bên phải sau đó can thiệp nút tắc đoạn xa của động mạch lưỡi và nhánh hầu lên bên trái bằng spongel (Hình 4) và cầm máu thành công. Trong vòng 24h sau khi chảy máu, BN được truyền tổng cộng 2800 ml khối hồng cầu. Sau can thiệp 1

ngày, BN được rút ống nội khí quản, tiếp tục điều trị methylprednisolon 48 mg/ngày (giảm dần liều theo đáp ứng lâm sàng) và Azathioprine 100 mg/ngày. BN được ra viện sau nút mạch 10 ngày. 2 tháng sau đó, BN không chảy máu tái phát, tăng 4 kg, vết loét quanh hậu môn đã liền, đại tiện phân khuôn 1 lần/ngày.



Hình 4: (A) Hình ảnh chảy máu hoạt động trên chụp mạch
(B) Kết quả cầm máu thành công bằng sponge

III. Bàn luận

Bệnh ruột viêm gồm viêm loét đại trực tràng chảy máu và CD. Khoảng 80% BN CD có tổn thương ở ruột non, thường ở đoạn cuối hồi tràng, 50% BN có tổn thương hồi manh tràng và 20% ở đại tràng. Ở 2 đầu của ống tiêu hóa, 1/3 số BN có tổn thương quanh hậu môn và khoảng 0,5 đến 20% BN có tổn thương miệng họng (tỷ lệ này cao hơn ở trẻ em) [1]. Tổn thương miệng họng thường gặp nhất là loét áp tơ, diễn biến từng đợt, ngoài ra có thể thấy viêm niêm mạc lợi, nhú niêm mạc, sưng nề môi, loét và mụn nước, tuy nhiên ít gặp. Loét lớn vùng họng hiếm gặp, có thể gồm viêm thanh thiệt, phù nề sụn phế quản với nhiều ổ loét vùng tiền đình thanh quản. Cơ chế bệnh sinh tổn thương miệng họng ở BN Crohn có thể do giảm nồng độ IgA trong nước bọt hoặc do phản ứng miễn dịch tế bào và/hoặc miễn dịch thể liên quan đến tình trạng quá mẫn với các kháng nguyên đường miệng khi cơ chế điều hòa miễn dịch bị thay đổi [3]. BN của chúng tôi khi khởi phát triệu chứng chính là loét miệng, hạ họng nhiều đợt, BN đi khám chuyên khoa Tai mũi họng nhiều lần chưa chẩn đoán ra bệnh, CD chỉ được chẩn đoán sau khi BN được nội soi đường tiêu hóa. Do vậy, cần nghĩ đến bệnh lý Crohn để nội soi dạ dày, đại tràng toàn bộ giúp hướng tới chẩn đoán xác định khi BN có biểu hiện lâm sàng loét khoang miệng họng tái diễn. Xuất huyết tiêu hóa là biến chứng có thể gặp ở CD với tỷ lệ từ 0,6 - 4% [4]. Tuy nhiên, cho tới thời điểm hiện tại, chưa có thống kê về tỷ lệ chảy máu do loét họng ở CD.

Điều trị chảy máu do loét hạ họng trong CD tùy thuộc mức độ chảy máu. Trường hợp chảy máu ít có thể phối hợp các biện pháp điều trị cầm máu tại chỗ kết hợp với điều trị CD toàn thân. Trường hợp chảy máu nặng phải hồi sức nội khoa, nếu cầm máu tại chỗ không thành công sẽ phải phẫu thuật hoặc can thiệp mạch.

Đối với chảy máu nhẹ, điều trị CD bằng các thuốc sinh học hoặc corticoid và thuốc điều hòa miễn dịch cũng có hiệu quả. Aniwani và CS báo cáo 7 BN CD có chảy tiêu hóa nặng được điều trị infliximab 5 mg/kg cân nặng thấy 6/7 BN kiểm soát được chảy máu trong vòng 24h, 1 BN tái chảy máu sau 3 ngày được điều trị thêm lần 2 infliximab với liều 5 mg/kg cân nặng và cầm máu thành công, tất cả 7 BN theo dõi sau 30 ngày không tái chảy máu [5]. Nghiên cứu của Kim KJ và CS về vai trò

của các thuốc trong điều trị CD xuất huyết tiêu hóa thấp cấp tính cho thấy BN dùng corticosteroid có tỷ lệ chảy máu cao hơn so với nhóm chứng nhưng điều này chưa được khẳng định trên phân tích đa biến [6]. Ngoài ra sử dụng sớm thiopurines có vai trò ngăn ngừa xuất huyết nặng ở BN Crohn với HR = 0,23 (95% CI: 0,12 - 0,48; P < 0,001) [7]. Trường hợp BN của chúng tôi khi chẩn đoán CD được xếp vào nhóm nguy cơ cao do tuổi khởi phát sớm, có tổn thương quanh hậu môn, loét miệng họng, điều trị ưu tiên là các thuốc sinh học. Tuy nhiên, sau khi thảo luận với gia đình BN về các thuốc điều trị, BN quyết định lựa chọn corticosteroid và azathioprine. BN đã có tiền sử đạt thuyên giảm bệnh trên lâm sàng và lành tổn thương trên nội soi sau 1 năm điều trị bằng phác đồ này nên chúng tôi nghĩ việc sử dụng lại phác đồ này có thể thành công.

Hiện tại chưa có hướng dẫn cụ thể cho điều trị tổn thương loét họng chảy máu nói chung. Ở BN chảy máu sau phẫu thuật cắt amidan, có thể xử trí bằng các biện pháp như ngâm nước đá, nén bằng bông gòn tẩm các thuốc co mạch tại chỗ như adrenalin 1/10000 hoặc dung dịch hydrogen peroxide 1%. Tuy nhiên, một số trường hợp chảy máu nặng cần phải can thiệp triệt để hơn bằng phẫu thuật hoặc nút mạch. Donna Mendez báo cáo BN nữ 7 tuổi có sốc mất máu sau cắt amidan, nhờ nhỏ giọt adrenaline tại chỗ giúp BN được đặt ống nội khí quản thành công và cầm máu tạm thời, sau đó BN được phẫu thuật thắt nhánh động mạch cảnh ngoài gây chảy máu [8].

Chụp và can thiệp mạch với mục tiêu là chọn lọc gây tắc các nhánh nuôi u hoặc nhánh gây chảy máu từ động mạch cảnh ngoài bằng các vật liệu nút mạch. Phương pháp này có thể xác định các mạch nuôi đến vùng chảy máu, tránh nguy cơ tổn thương các dây thần kinh phế vị, thần kinh phụ và tránh vết rạch vùng cổ [9]. Có nhiều loại vật liệu nút mạch bao gồm keo sinh học hystoacryl, Ethyl-vinyl alcohol copolymer (EVOH-Onyx), các loại hạt, xốp sinh học (Spongel), vòng xoắn kim loại (coils). Nhìn chung hạt và vật liệu lỏng là hai loại thường được sử dụng để nút mạch hệ thống động mạch cảnh ngoài. Mặc dù khả năng đi qua của các hạt (hay sử dụng spongel, PVA,...) phụ thuộc vào kích thước, vật liệu tắc mạch lỏng như hystoacryl và Onyx có thể mở và đi vào các vòng nối nhỏ mà không nhìn thấy được trên chụp mạch ban đầu nên

phải thận trọng. Spongel là chất cầm máu không tan trong nước, lần đầu tiên được sử dụng để cầm máu trong phẫu thuật vào năm 1945. Sau đó được sử dụng gây tắc rò động mạch cảnh-xoang hang, ung thư biểu mô tế bào gan, u xơ tử cung và chảy máu các động mạch lớn. BN của chúng tôi đã được chụp và can thiệp nút mạch bằng spongel giúp cầm chảy máu. Yoshihiro và cs báo cáo ca lâm sàng BN Crohn có biến chứng sốc mất máu do loét hồi tràng chảy máu được can thiệp nút đoạn xa động mạch hồi tràng thành công bằng spongel [2]. Một số nghiên cứu khác về can thiệp chảy máu vùng huyệt của Ghiassi và cs báo cáo ca lâm sàng BN nữ 11 tuổi chảy máu ổ loét trong ổ cắt amidan và can thiệp cầm máu tại chỗ thất bại. BN được chụp mạch xác định vị trí chảy máu ở động mạch lưỡi phải và can thiệp thành công bằng bơm keo sinh học Onyx-18 [10]. Ahmad Sayed và cs nghiên cứu hồi cứu 8 BN chảy máu sau cắt amidan, tất cả các trường hợp đều có giả phình nhánh động mạch cảnh ngoài được can thiệp nội mạch bằng keo NBCA thành công [9]. Tuy nhiên, can thiệp nội mạch cũng có các nguy cơ biến chứng như thủng mạch gây thoát các chất gây tắc mạch hoặc thuốc cản quang ra mô xung quanh, thiếu máu cục bộ bề mặt niêm mạc và dây thần kinh sọ do mạch chi phối hoặc gây co thắt, tắc động mạch động mạch cảnh trong. Do đó can thiệp nội mạch nên được chỉ định cho những trường hợp chảy máu nặng mà can thiệp qua đường miệng thất bại.

Cầm máu bằng phẫu thuật được thực hiện dưới gây mê toàn thân. Các biện pháp can thiệp gồm khâu chọn lọc hoặc điện đông lưỡng cực điểm mạch chảy máu. Nếu thất bại sau 3 lần can thiệp, BN tiếp tục chảy máu trên lâm sàng, huyết sắc tố giảm thấp, phẫu thuật thắt các nhánh của động mạch cảnh ngoài là biện pháp sau cùng giúp cầm máu ở BN chảy máu vùng hầu họng nhưng kỹ thuật thực hiện có thể rất khó khăn do một số lý do: (1) máu có thể đã tạm ngừng do giảm huyết áp thứ phát sau xuất huyết hoặc gây mê; (2) khó xác định vị trí mạch chảy máu do mạch máu bị co lại trong mô họng viêm, hoặc do chảy máu ổ loét [9].

IV. Kết luận

Chảy máu do loét hạ họng ở CD là hiếm gặp. Chụp mạch cho phép đánh giá vị trí gây chảy máu và can thiệp nội mạch bằng vật liệu gây tắc mạch

là phương pháp điều trị hiệu quả đối với tình trạng xuất huyết nặng do loét hạ họng ở BN Crohn. Can thiệp này nên được xem xét khi các biện pháp cầm máu tại chỗ không hiệu quả. Tuy nhiên, việc phối hợp nhóm giữa bác sĩ nội tiêu hóa, hồi sức, tai mũi họng, chẩn đoán hình ảnh là cần thiết để đảm bảo an toàn cho BN và kiểm soát cầm máu thành công.

Tài liệu tham khảo

1. Rachid Mohamed, Robert Schultz, Richard N Fedorak (2008). Oropharyngeal Crohns disease. *Clinical and Experimental Gastroenterology* 2008;1:15–18
2. Yoshihiro Kazama, Toshiaki Watanabe, Masaaki Akahane et al (2005). Crohns disease with life-threatening hemorrhage from terminal ileum: successful control by superselective arterial embolization. *J Gastroenterol* 40:1155–1157
3. Wilder WM, Slagle GW, Hand AM, Watkins WJ. Crohns disease of the epiglottis, aryepiglottic folds, anus, and rectum. *J Clin Gastroenterol* 1980;2:87-91 – ENT 2007.
4. Belaiche J, Louis E, DHaens G et al. Acute lower gastrointestinal bleeding in Crohns disease: characteristics of a unique series of 34 patients. *Belgian IBD Research Group. Am J Gastroenterol*.1999;94:2177–2181
5. Aniwan S, Eakpongpaist S, Imraporn B et al. Infliximab stopped severe gastrointestinal bleeding in Crohns disease (2012). *World Gastroenterol* 18:2730–2734.
6. Kim KJ, Han BJ, Yang SK, et al (2012). Risk factors and outcome of acute severe lower gastrointestinal bleeding in Crohns disease. *Dig Liver Dis* 44:723–728
7. Jiyoung Yoon, Dae Sung Kim, Ye-Jee Kim et al (2021). Risk factor and prognostic value of acute severe lower gastrointestinal bleeding in Crohns disease. *World J Gastroenterol* 27(19): 2353-2365
8. Donna Mendez (2019). Instilled Epinephrine into the Oropharynx for Life Threatening Post-Tonsillectomy Hemorrhage. *Biomed J Sci & Tech Res*, Volume 13- Issue 4
9. Ahmad Sayed Awad, Amr A. Nassef and Shady Nabil Mashhour (2021). Transarterial embolization with N-butyl 2-cyanoacrylate for the treatment of recurrent secondary post-tonsillectomy hemorrhage. *Egyptian Journal of Radiology and Nuclear Medicine*
10. Ghiassi M, Tomycz L, Ehtesham M et al (2012). Emergent intraoperative embolization of lingual artery for uncontrollable hemorrhage during tonsillectomy. *J Neurointerv Surg* Vol 4 Suppl 1.