

·论著·

经小切口单侧椎间隙入路手术治疗儿童 隐匿性脊髓栓系综合征的疗效分析



全文二维码



开放科学码

李 浩 范双石 苏 君 张津维 刘一君 吴水华

【摘要】 目的 探讨小切口单侧椎间隙入路手术治疗儿童隐匿性脊髓栓系综合征 (occult tethered cord syndrome, OTCS) 的临床效果, 为儿童 OTCS 的诊治提供参考。 **方法** 回顾性分析 2020 年 11 月至 2021 年 4 月湖南省儿童医院神经外科经单侧椎间隙入路小切口行终丝离断术治疗的 28 例 OTCS 患者临床资料, 男 21 例, 女 7 例; 年龄 2 岁 8 个月至 11 岁 7 个月, 平均年龄 (6.4 ± 2.4) 岁; 收集手术前后腰骶部仰卧位及俯卧位 MRI 检查、术前双下肢体感诱发电位、膀胱残余尿量、术后病理等结果, 随访患者术后症状改善情况。 **结果** 28 例均经单侧椎间隙入路小切口手术离断终丝, 松解栓系。术前仰卧位 MRI 阳性率为 21.4%, 俯卧位 MRI 阳性率为 100%, 出院后 3~6 个月随访, 无一例出现新发神经系统症状。术后症状总缓解率为 78% (22/28), 其中泌尿系统症状缓解率为 72% (13/18), 肠道功能障碍缓解率为 92% (12/13), 双下肢相关症状缓解率为 100% (2/2)。 **结论** 小切口单侧椎间隙入路终丝离断术能够改善 OTCS 患者临床症状, 疗效确切, 值得推广。腰骶部俯卧位 MRI 是疑似 OTCS 患者的重要检查手段, 具有临床应用价值。

【关键词】 隐匿性脊髓栓系综合征; 终丝; 外科手术; 治疗结果; 儿童

【中图分类号】 R651.2 R726.511

Unilateral intervertebral space approach through small incision for the treatment of occult tethered cord syndrome in children. Li Hao, Fan Shuangshi, Su Jun, Zhang Jinwei, Liu Yijun, Wu Shuihua. Hunan Children's Hospital, Changsha, Hunan, 410007. Corresponding author: Wu Shuihua, Email: 292454021@qq.com

【Abstract】 Objective To explore the clinical effect of surgical treatment through small incision of occult tethered cord syndrome (OTCS) in children, and provide reference for the diagnosis and treatment of OTCS in children. **Methods** The clinical data of 28 children with OTCS treated by terminal filum disconnection through minimally invasive incision from November 2020 to April 2021 were analyzed retrospectively. In total, 21 males and 7 females with the age ranged from 2 years and 8 months to 11 years and 7 months, and the average age was 6.4 ± 2.4 years. Preoperative and postoperative MRI of lumbosacral in supine and prone position, preoperative sensory evoked potentials of lower limbs, residual urine volume of bladder, and postoperative pathological results were collected. The improvement of postoperative symptoms of patients was followed up. **Results** All children underwent minimally invasive incision through the unilateral intervertebral space approach to disconnect the terminal filum and loosen the tethered. 28 children were followed up for 3~6 months after discharge with no new onset of neurological symptoms. The overall remission rate of postoperative symptoms was 78% (22/28); the remission rate of urinary system symptoms was 72% (13/18); the remission rate of intestinal dysfunction was 92% (12/13); the remission rate of lower limb symptoms was 100% (2/2). **Conclusion** Minimally invasive incision terminal filum disconnection can improve the clinical symptoms of children with OTCS. Prone position MRI is an important examination method for children with suspected OTCS, and is worthy of promotion.

【Key words】 Occult Tethered Cord Syndrome; Terminal Filum; Surgical Procedures, Operative; Treatment Outcome; Child

DOI: 10.12260/lcxewkzz.2021.12.010

基金项目: 湖南省出生缺陷协同防治科技重大专项 (编号: 2019 SK1010)

作者单位: 湖南省儿童医院神经外科 (湖南省长沙市, 410007)

通信作者: 吴水华, Email: 292454021@qq.com

脊髓栓系综合征 (tethered cord syndrome, TCS) 是指先天性和 (或) 后天性因素造成脊髓受牵拉、压迫, 圆锥低位, 脊髓神经血管缺血缺氧, 进而发生变性坏死或退行性改变, 出现下肢感觉与运动功能障碍

碍或畸形、大小便功能障碍等神经损害的综合征^[1]。按病因可分为五种类型:脊髓脊膜膨出、脂肪瘤型、终丝型、脊髓纵裂畸形、潜毛窦型^[2]。其中终丝型脊髓栓系的发病机制被认为是增粗、变性的终丝牵拉脊髓末端圆锥,导致圆锥血流量及氧化代谢减少而引起 TCS 相关症状^[3]。终丝型脊髓栓系综合征通常会导致脊髓圆锥位置下移,影像学上表现为脊髓圆锥末端低于 L2 椎体下缘^[4]。近年来有研究发现某些终丝型脊髓栓系综合征患者圆锥位置可以不降低,故 Khoury 等^[5]提出了隐匿性脊髓栓系综合征(occult tethered cord syndrome, OTCS)的概念。OTCS 是终丝型脊髓栓系综合征的一种特殊类型,与 TCS 症状相似,主要表现为大、小便功能障碍,双下肢感觉、运动功能异常。OTCS 患者终丝可不发生脂肪变性,传统检查手段难以确诊,且术中对于终丝的有效暴露及避免对周围神经根的牵拉存在一定难度。目前国内外关于 OTCS 手术治疗的方式已有较多研究报道,但切口较大,且均需切除椎板,伤及骨质,可能影响手术后脊柱的稳定性^[6-8]。近年来湖南省儿童医院神经外科采用左侧椎间隙入路小切口终丝离断术治疗 OTCS,现回顾性分析患者手术前后临床表现改变情况、仰卧位及俯卧位 MRI 检查结果、泌尿系统相关检查结果等,评估患者手术后功能改善情况,为 OTCS 的临床诊疗提供参考。

材料与方法

一、临床资料

本研究收集 2020 年 11 月至 2021 年 4 月在湖南省儿童医院神经外科经左侧椎间隙入路小切口行终丝离断术治疗的 28 例 OTCS 患者作为研究对象。男 21 例,女 7 例,年龄 2 岁 8 个月至 11 岁 7 个月,平均年龄为(6.4 ± 2.4)岁。临床表现:泌尿系统症状 18 例,其中夜间遗尿 9 例,尿频 3 例,小便失禁 6 例;肠道功能障碍 13 例,其中粪污 11 例,便秘 2 例;双下肢感觉、活动异常 2 例,其中双下肢麻木 1 例,双下肢肌张力升高 1 例。患者均行双下肢体感诱发电位检查,其中 11 例有阳性发现。均行泌尿系彩超及膀胱残余尿量检查,其中 11 例有阳性发现,表现为:肾积水,膀胱壁增厚、毛糙,膀胱残余尿量增加。

病例纳入标准:①有典型脊髓栓系综合征的临床表现且经药物(奥昔布宁、托特罗定等)保守治疗无效或停药后症状复发;②脊髓圆锥位置正常;③

有典型腰骶部俯卧位 MRI 表现;④排除既往脊髓损伤或手术史;⑤排除神经肌肉病变。

二、手术方式

采取经单侧椎间隙入路终丝离断术^[9]。均行全麻静吸复合麻醉,麻醉诱导成功后停肌松药。患者取俯卧位,21 例经 L3 ~ L4 椎间隙、4 例经 L4 ~ L5 椎间隙、1 例经 L5 ~ L1 椎间隙入路,于后正中线切开皮肤及左侧竖脊肌,显露左侧黄韧带,尖刀切开黄韧带,枪式咬骨钳咬除部分黄韧带及硬脊膜外脂肪,显露硬脊膜。显微镜下剪开并悬吊硬脊膜,显露终丝,均见终丝张力升高,部分病例终丝紧贴于硬脊膜背侧。在神经电生理监测下分辨和确认终丝,并切除 0.5 ~ 1.0 cm 送病理检查,逐层缝合。

结 果

一、治疗结果

28 例患者均经左侧椎间隙入路完成手术。术中均可见终丝张力不同程度升高,其中 7 例(7/29, 24.1%)终丝增粗(直径 ≥ 2 mm),呈淡黄色脂肪变性,5 例(5/29, 17.2%)见淡红色纤维变性。28 例患者均获随访,术后随访时间 3 ~ 6 个月,无一例出现神经系统新发症状。术前症状完全消失及有所好转认为病情缓解,术前症状无明显改变认为病情无改善,结果如下表。术后总体症状缓解率为 78%,其中泌尿系统症状缓解率为 72%,肠道功能障碍缓解率为 92%,双下肢症状缓解率为 100%。如表 1 所示。

表 1 29 例 OTCS 患者临床表现及手术后症状缓解情况
Table 1 Clinical manifestations and postoperative remission in children with OTCS

临床症状	例数	症状缓解例数/缓解率(n, %)
泌尿系统症状	18	13(72)
夜间遗尿	9	6(67)
尿频	33	33(100)
小便失禁	6	4(67)
肠道功能障碍	13	12(92)
大便失禁	11	10(91)
便秘	2	2(100)
双下肢麻木	1	1(100)
双下肢肌张力升高	1	1(100)

二、影像学检查结果

患者手术前、后均行仰卧位及俯卧位腰骶部 MRI 检查。术前仰卧位 MRI 检查 6 例 T2 横断面见终丝增粗,信号降低, T1 横断面终丝呈脂肪信号;其

余 22 例未见明显异常表现,仰卧位 MRI 阳性率为 21.4% (6/28)。术前俯卧位 MRI 检查 T2 横断面均可见终丝不同程度向背侧移位,阳性率达 100%,其中 27 例终丝在 L4 及以上节段紧贴于硬脊膜囊后壁,占 96.4%,术中证实终丝张力明显升高,并与马尾神经根分离,除终丝外其余马尾神经根不同程度向腹侧移位。所有患者术后复查俯卧位 MRI,均未见终丝向背侧移位。

三、典型病例

8 岁女性患者,2 个月前无明显诱因出现尿频、小便失禁(日间夜间均有),1 个月前小便失禁症状加重,且出现大便失禁,无双下肢感觉、运动异常。

当地医院予药物治疗(药物不详),症状无明显缓解。本院腰骶部仰卧位 MRI 检查轴位 T2 成像无明显阳性发现(图 1A),T1 成像示终丝呈高信号(图 1F)。俯卧位 L3 椎体水平 T2 成像见终丝增粗,且与马尾神经根分离明显,向背侧移位(图 1B),经本院诊断为 OTCS。完善术前检查后行 L3~L4 椎间隙入路终丝离断术,术中见终丝贴向硬脊膜背侧、增粗,呈脂肪变性(图 1C)。术后病理证实终丝呈纤维、脂肪变性(图 1D)。术后复查 MRI 提示终丝已离断,俯卧位 L3 椎体水平成像未见终丝异常信号或牵拉移位等(图 1E、1G)。术后患者大小便失禁明显缓解。

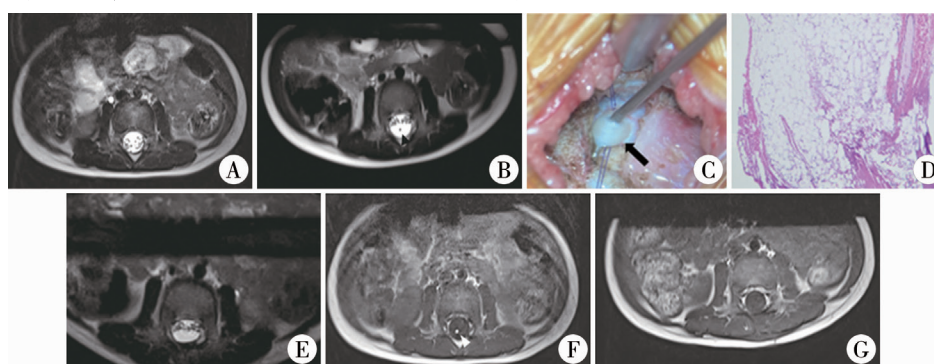


图 1 OTCS 患者术前、术后影像学表现、术中情况及病理结果 **注** A:术前仰卧位 MRI 示 L3 椎体水平 T2 轴位未见明显异常; B:术前俯卧位 MRI 水平 T2 轴位见终丝与马尾神经根分离,终丝增粗,向背侧移位(黑色三角),马尾神经根向腹侧移位; C:术中镜下见终丝增粗,张力升高,呈脂肪变性(黑色箭头); D:术后病理检查:镜下见大量纤维组织、脂肪组织; E:术后俯卧位 MRI 相同椎体水平 T2 轴位见终丝异常信号消失,除终丝外其余马尾神经根较术前向背侧移位; F、G:术前及术后仰卧位 MRI 相同椎体水平 T1 轴位成像,术前终丝呈高信号(白色三角),术后终丝已离断

Fig. 1 Preoperative and postoperative radiological images, intraoperative pictures and pathological results of the child with OTCS

讨 论

一、隐性脊髓栓系综合征治疗策略

终丝牵拉引起脊髓圆锥位置降低的脊髓栓系综合征(TCS)其临床表现及典型 MRI 表现已被充分证实和接受^[10]。小儿神经外科医生对 TCS 的治疗方式也较为一致^[11]。但国内外学者对于 OTCS 的诊断、是否手术治疗及手术方式仍存在较大争议,主要原因是 OTCS 临床症状多变^[12]。目前以出现典型 TCS 临床表现,排除其他神经系统、泌尿系统疾病及肛门直肠畸形等作为诊断标准^[7]。有学者对诊断考虑为 OTCS 的患者进行俯卧位 MRI 检查发现,相较于正常儿童,OTCS 患者的终丝由于张力升高而向背侧移位,其他马尾神经根向腹侧移位,终丝与马尾神经根呈分离现象^[6]。最近有研究对 OTCS 患者的终丝进行病理学研究,结果显示与正常终丝相比,这类患者的终丝含纤维和脂肪组织明

显升高^[13]。这表明 OTCS 患者的终丝弹性降低,即使圆锥位置正常,终丝仍对圆锥有牵拉作用,应积极手术以阻止病情加重。

二、俯卧位 MRI 在 OTCS 术前评估中的意义

腰骶部 MRI 是 TCS 的主要诊断依据,它可以显示脊髓圆锥位置、终丝的脂肪化及纤维化^[3]。然而对于 OTCS 患者,MRI 检查通常无阳性发现,检查结果阴性率达 90%^[14]。早年有对 TCS 患者行俯卧位 MRI 检查的研究报道,但这些研究将焦点集中在脊髓圆锥的位置,而未关注终丝和马尾的位置^[15]。他们发现俯卧位 MRI 脊髓圆锥位置较仰卧位有后移,但阳性率不高。最近有研究发现相较于正常患者,在俯卧位 MRI 检查时,OTCS 患者的终丝更靠近背侧,而其他马尾神经根更靠近腹侧;有部分患者的终丝及马尾神经出现典型“日出”现象(即终丝、马尾分离现象);同时终丝贴向硬脊膜囊的节段更靠上^[6]。本组患者均行仰卧位及俯卧位 MRI 检查,结果提示仰卧位 MRI 阳性率较低;而俯卧位 MRI 检查

阳性率达 100%，均可见终丝向背侧移位，其中 13 例呈典型“日出”现象，占 46.4%。我们分析可能是由于终丝张力升高且失去弹性，从而承担了绝大部分牵张力，俯卧位时向背侧移位，同时其余马尾神经根张力较正常减低，由于重力作用俯卧位时移向腹侧。而仰卧位时，同样由于重力作用，终丝及马尾神经根均紧贴于背侧硬脊膜，难以明确终丝张力是否升高。术后俯卧位 MRI 提示终丝离断后失去张力，终丝-马尾分离现象消失，马尾神经根较术前移向腹侧，可能是由于终丝离断后，牵张力由其余神经根分担所致。因此，我们认为俯卧位 MRI 终丝与马尾神经分离现象及终丝贴壁位置可作为 OTCS 的辅助诊断依据，而术后俯卧位 MRI 可作为手术效果的评价指标。但 OTCS 患者俯卧位 MRI 敏感性、一致性均不高，仍需结合患者临床表现及其他辅助检查结果做出诊断^[14]。

三、微创切口手术治疗 OTCS 及预后评估

传统手术对终丝的显露较为充分，但多为无效显露，且切口较大，术中出血较多，手术时间较长，需切除一侧或双侧椎板，损伤骨质，远期可能对脊柱的稳定性造成影响^[7,16,17]。苑斌等^[9]报道了经 L5~S1 单侧椎间隙入路离断终丝的手术方式，有效减少了术中对脊柱椎板的损伤。本研究手术方式在此基础上进行改良，术中将体位垫置于患者髂前上棘，使其腰椎呈弓形，扩大椎间隙，减小皮肤切口（1.5~2 cm）。术中采用剥离子分离左侧椎旁竖脊肌，避免术中出血及单极电凝切开肌层造成损伤；暴露棘间韧带及黄韧带后，切除左侧部分黄韧带，不破坏脊柱的稳定性。术中对硬脊膜进行悬吊，减少术中渗血进入硬膜下腔的可能。显露终丝及离断过程均于硬脊膜下方操作，避免术中对终丝及圆锥末端的过度牵拉。本研究 29 例术中均成功暴露终丝，行终丝离断，术后复查仰卧位及俯卧位 MRI 显示终丝张力减低，未见术后再栓系。本研究改良手术切口小，手术时间短，术中损伤少，不损伤骨质，保留了脊柱的稳定性，术后恢复较快；但对术前准确定位、术中体位及显微镜下操作的要求较高，且存在术中出血遮挡术野等风险，必要时需要延长手术切口。

OTCS 最常见临床症状为泌尿系统症状，儿童主要表现为尿频和尿失禁，发生率为 68%~100%。有 58% 的患者可出现便秘、大便失禁等肠道症状^[18]。有文献报道终丝离断术后泌尿系统症状改善率为 65.6%，肠道功能障碍缓解率为 88%^[19]。

本组 18 例有泌尿系统症状，占比 62.07%，14 例有消化系统症状，占比 48.3%；终丝离断术后泌尿系统症状缓解率为 72%，肠道功能障碍缓解率为 92%，与文献报道相仿。但本组病例随访时间较短，最终疗效以及有无缓解后再次复发或加重等情况，还需更长期随访研究以佐证。

参考文献

- 1 文海韬,王潜阳,陈小燕,等.多模式神经电生理监测在儿童脊髓栓系松解术中的应用价值研究[J].临床小儿外科杂志,2020,19(9):830-836. DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2020.09.014.
Wen HT, Wang QY, Chen XY, et al. Application value of multi-mode neuroelectrophysiological monitoring during spinal cord loosening for tethered cord syndrome in children [J]. J Clin Ped Sur, 2020, 19(9): 830-836. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2020.09.014.
- 2 Pusat S, Kural C, Solmaz I, et al. Comparison of electrophysiological outcomes of tethered cord syndrome and spinal intradural tumors: a retrospective clinical study [J]. Turk Neurosurg, 2017, 27(5): 797-803. DOI: 10.5137/1019-5149.JTN.17043-16.0.
- 3 Gupta A, Rajshekhar V. Fatty filum terminale (FFT) as a secondary tethering element in children with closed spinal dysraphism [J]. Childs Nerv Syst, 2018, 34(5): 925-932. DOI: 10.1007/s00381-017-3700-y.
- 4 Gupta A, Rajshekhar V. Fatty filum terminale (FFT) as a secondary tethering element in children with closed spinal dysraphism [J]. Childs Nerv Syst, 2018, 34(5): 925-932.
- 5 Khoury AE, Hendrick EB, McLorie GA, et al. Occult spinal dysraphism: clinical and urodynamic outcome after division of the filum terminale [J]. J Urol, 1990, 144(2 Pt 2): 426-429. DOI: 10.1111/j.1464-410X.1990.tb14913.x.
- 6 Nakanishi K, Tanaka N, Kamei N, et al. Use of prone position magnetic resonance imaging for detecting the terminal filum in patients with occult tethered cord syndrome [J]. J Neurosurg Spine, 2013, 18(1): 76-84. DOI: 10.3171/2012.10.SPINE12321.
- 7 张宇,刘福云,夏冰,等.终丝离断术治疗隐性脊髓栓系综合征中短期疗效分析[J].中华小儿外科杂志,2020,41(4):351-352. DOI:10.3760/cma.j.cn421158-20190521-00366.
Zhang Y, Liu FY, Xia B, et al. Analysis of short/medium-term efficacy of filum terminectomy for occult tethered cord syndrome [J]. Chin J Pediatr Surg, 2020, 41(4): 351-352. DOI: 10.3760/cma.j.cn421158-20190521-00366.
- 8 谢京城,陈晓东,杨军.终丝牵张型脊髓栓系综合征的

- MRI 分型及显微手术治疗的中长期效果[J]. 中国微创外科杂志, 2020, 20(7): 577-580. DOI: 10.3969/j.issn.1009-6604.2020.07.001.
- Xie JC, Chen XD, Yang J, et al. MRI classification and microsurgical treatment for tethered cord syndrome due to filum terminale traction; mid-and long-term follow-ups[J]. Chinese Journal of minimally invasive surgery, 2020, 20(7): 577-580. DOI: 10.3969/j.issn.1009-6604.2020.07.001.
- 9 苑斌, 陈民, 王杭州. 经单侧椎间隙入路手术治疗儿童终丝型脊髓拴系的疗效分析[J]. 临床小儿外科杂志, 2019, 18(2): 95-98. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2019.02.005.
 - Yuan B, Chen M, Wang HZ. Surgical treatment of tethered spinal cord caused by terminal filum through an unilateral intervertebral space approach[J]. J Clin Ped Sur, 2019, 18(2): 95-98. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2019.02.005.
 - 10 O'Connor KP, Smitherman AD, Milton CK, et al. Surgical treatment of tethered cord syndrome in adults; a systematic review and meta-analysis[J]. World Neurosurg, 2020, 137: e221-e241. DOI: 10.1016/j.wneu.2020.01.131.
 - 11 Jiang J, Zhang S, Dai C, et al. Clinical observations on the release of tethered spinal cord in children with intra-operative neurophysiological monitoring: A retrospective study[J]. J Clin Neurosci, 2020, 71: 205-212. DOI: 10.1016/j.jocn.2019.07.080.
 - 12 Michael MM, Garton A, Kuzan-Fischer CM, et al. A critical analysis of surgery for occult tethered cord syndrome[J]. Childs Nerv Syst, 2021, 37(10): 3003-3011. DOI: 10.1007/s00381-021-05287-5.
 - 13 Saker E, Henry BM, Tomaszewski KA, et al. The filum terminale internum and externum: A comprehensive review[J]. J Clin Neurosci, 2017, 40: 6-13. DOI: 10.1016/j.jocn.2016.12.020.
 - 14 Singh S, Kline-Fath B, Bierbrauer K, et al. Comparison of standard, prone and cine MRI in the evaluation of tethered cord[J]. Pediatr Radiol, 2012, 42(6): 685-691. DOI: 10.1007/s00247-011-2308-8.
 - 15 Witkamp TD, Vandertop WP, Beek FJ, et al. Medullary cone movement in subjects with a normal spinal cord and in patients with a tethered spinal cord[J]. Radiology, 2001, 220(1): 208-212. DOI: 10.1148/radiology.220.1.r01j106208.
 - 16 沈志鹏, 曾翰海, 石武杰, 等. 小切口松解手术治疗儿童单纯脊髓拴系综合征的疗效[J]. 中华神经外科杂志, 2019, 35(12): 1226-1227. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1001-2346.2019.12.008.
 - Shen ZP, Zeng HH, Shi WJ, et al. Efficacy of small-incision untethering surgery on tethered cord syndrome in children[J]. Chin J Neurosurg, 2019, 35(12): 1226-1227. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1001-2346.2019.12.008.
 - 17 王乐凯, 陶本章, 杨昌浩, 等. 小切口微创在儿童脊髓拴系综合征栓系松解中的应用[J]. 局解手术学杂志, 2018, 27(1): 56-61. DOI: 10.11659/jjssx.05E017043.
 - Wang LK, Tao BZ, Yang CH, et al. Small incision surgical treatment for children with tight filum terminale type of tethered cord syndrome[J]. Journal of local surgery, 2018, 27(1): 56-61. DOI: 10.11659/jjssx.05E017043.
 - 18 Steinbok P, MacNeily AE, Hengel AR, et al. Filum section for urinary incontinence in children with occult tethered cord syndrome: a randomized, controlled pilot study[J]. J Urol, 2016, 195(4 Pt 2): 1183-1188. DOI: 10.1016/j.juro.2015.09.082.
 - 19 Metcalfe PD, Luerssen TG, King SJ, et al. Treatment of the occult tethered spinal cord for neuropathic bladder: results of sectioning the filum terminale[J]. J Urol, 2006, 176(4 Pt 2): 1826-1830. DOI: 10.1016/j.juro.2006.04.090.

(收稿日期: 2021-05-30)

本文引用格式: 李浩, 范双石, 苏君, 等. 经小切口单侧椎间隙入路手术治疗儿童隐匿性脊髓拴系综合征的疗效分析[J]. 临床小儿外科杂志, 2021, 20(12): 1154-1158. DOI: 10.12260/lxewkzz.2021.12.010.

Citing this article as: Li H, Fan SS, Su J, et al. Unilateral intervertebral space approach through small incision for the treatment of occult tethered cord syndrome in children[J]. J Clin Ped Sur, 2021, 20(12): 1154-1158. DOI: 10.12260/lxewkzz.2021.12.010.