

·专题·小儿微创外科技术·

胸腔镜下解剖性病灶切除术治疗 儿童先天性肺畸形的初步探讨



全文二维码

袁森 徐畅 程凯昇 杨纲 何涛贞
四川大学华西医院小儿外科,成都 610041
通信作者:徐畅,Email:xcxcxc52229081@163.com



手术视频二维码

【摘要】目的 初步探讨胸腔镜下解剖性病灶切除(anatomic lesion resection, ALR)治疗儿童先天性肺畸形(congenital lung malformations, CLMs)的安全性与有效性。**方法** 以2019年10月至2020年10月在四川大学华西医院接受ALR的72例先天性肺畸形患儿为研究对象,其中男50例,女22例,年龄5个月至3岁,平均年龄10个月。所有患儿术前行胸部增强及高分辨薄层CT检查,明确肺部病灶位置及边界,初步评估后再结合术中病灶边界行ALR治疗,术后病检结果均支持CLMs,其中先天性肺气道畸形(congenital pulmonary airway malformation, CPAM)45例,叶内型肺隔离症(intralobar pulmonary sequestration, ILS)27例。所有患儿术后接受至少3个月的随访,并于术后3个月和1年复查胸部平扫CT。**结果** 72例均在胸腔镜下顺利完成手术,无一例中转开放手术。手术时间(68.2 ± 18.6)min(38~142 min);术中出血量(6.2 ± 2.4)mL,病灶直径(4.2 ± 1.7)cm。病灶位置:38例位于右肺下叶,2例位于右肺上下叶,2例位于右肺中下叶,22例位于左肺下叶,8例位于左肺上叶。所有患儿术中置16Fr引流管1根,引流管拔除时间为术后(1.32 ± 0.25)d。所有患儿术后无支气管胸膜瘘、出血、肺不张、肺部感染、病灶残留、复发、再次手术等情况发生。1例术后1个月出现气胸,予重新置入胸腔闭式引流管、保守治疗1周后愈合出院。2例术后1个月因咳嗽、发热就诊于呼吸内科,胸部CT提示病灶切除位置出现规则圆形囊腔,予以抗炎等对症治疗后康复出院。术后住院时间为(3.3 ± 0.2)d。3例术后3个月胸部平扫CT提示肺部有代偿性气肿表现,其余患儿患侧肺叶复张良好。**结论** ALR结合术前薄层CT和术中病灶边界,基于肺静脉行解剖性肺内游离,是仅切除病灶的保肺手术,治疗CLMs具有较高的安全性与有效性。但该术式需要精准的肺内操作,对术者要求较高,且需严格掌握适应证。

【关键词】 肺/畸形;肺病/外科学;胸腔镜检查;最小侵入性外科手术

基金项目:国家自然科学基金(31201095)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202106065-003

Preliminary study of thoracoscopic anatomic lesion resection for congenital lung malformations in children

Yuan Miao, Xu Chang, Cheng Kaisheng, Yang Gang, He Taozhen

Department of Pediatric Surgery, West China Hospital, Sichuan University, Chengdu 610041, China

Corresponding author: Xu Chang, Email: xcxcxc52229081@163.com

【Abstract】Objective To explore the safety and efficacy of thoracoscopic anatomic lesion resection (ALR) in the treatment of congenital pulmonary malformations in children. **Methods** A retrospective review of clinical data was conducted for 72 children undergoing ALR from October 2019 to October 2020. The average age was 10(5~36) months. **Results** All cases were operated under thoracoscope without any conversion into open surgery. The average operative duration was (68.2 ± 18.6) (38~142) min, the average intraoperative bleeding volume (6.2 ± 2.4) (2~10) ml and the average diameter of lesion (4.2 ± 1.7) (3~7) cm. The lesions were located in right lower lobe ($n=38$), right upper/lower lobe ($n=2$), middle/lower lobe ($n=2$), left lower lobe ($n=22$) and left upper lobe ($n=8$). There was no onset of bronchopleurothelial fistula, hemorrhage, atelectasis or pulmonary infection. One child of pneumothorax at Month 1 post-operation was cured by closed thoracic drainage. Two cases were hospitalized in respiratory medicine at Month 1 post-operation due to cough and fever. Chest CT revealed a regular cyst at the location of lesion ($n=2$). Both were discharged after

anti-inflammatory treatment. The postoperative hospital stay was (3.3 ± 0.2) days. Chest computed tomography (CT) hinted at compensatory emphysema at Month 3 post-operation ($n = 3$) and the remainders recovered well. **Conclusion** In conjunctions with preoperative thin-slice CT and intraoperative lesion boundary and anatomic intrapulmonary dissociation based upon pulmonary vein, ALR, as a lung sparing surgery, offers high safety and effectiveness in the treatment of CLMs. However, operation requires more accurate lung maneuver, greater operator requirements and stricter control of its indications.

[Key words] Lung/AB; Lung Diseases/SU; Thoracoscopy; Mini-Invasive Surgical Procedures

Fund program: National Natural Science Foundation of China(31201095)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202106065-003

儿童先天性肺畸形 (congenital lung malformations, CLMs) 是一类气道、肺实质及肺血管发育异常的先天性疾病, 其中最常见类型是先天性肺气道畸形 (congenital pulmonary airway malformation, CPAM) 和叶内型肺隔离症 (intralobar pulmonary sequestration, ILS)。因病灶有感染及癌变的风险, 目前治疗策略更倾向于早期手术, 而胸腔镜手术已成为主要方式^[1-3]。解剖性肺叶切除是治疗 CLMs 的标准术式, 基本无病灶残留风险, 但在完整切除病灶的同时也切除了较多的正常肺组织^[4]。解剖性肺段切除适用范围较广, 能够完整切除病灶, 但同时需要切除部分正常肺组织。当病灶位于一个或多个肺段内, 且与正常肺组织没有确切边界时, 可以选择解剖性肺段切除术。非解剖性楔形切除术操作简单, 适合于病灶局限于外周, 且与正常肺组织之间存在边界的患儿, 但劈肺时离病灶太近可能导致病灶残留而复发, 离病灶太远则切除了更多的正常肺组织, 且容易导致正常肺组织结构的副损伤^[5-6]。与成人恶性肿瘤不同, CLMs 是一类良性错构瘤样病变, 手术完整切除病灶就能达到治愈疾病的目的。因此, 治疗 CLMs 最理想的方式是完整切除病灶, 保留全部正常肺组织。由于目前的手术方式术后出血、漏气、病灶残留等并发症的发生风险较高, 并且会切除部分正常肺组织, 因此手术治疗 CLMs 仍存在争议^[7-8]。本研究旨在初步探讨胸腔镜下解剖性病灶切除 (anatomic lesion resection, ALR) 治疗儿童先天性肺畸形 (congenital lung malformations, CLMs) 的安全性与有效性。

材料与方法

一、临床资料

以 2019 年 10 月至 2020 年 10 月在四川大学华西医院接受 ALR 的 72 例先天性肺畸形患儿为研究对象, 其中男 50 例, 女 22 例。年龄 5 个月至 3 岁, 平均年龄 10 个月。患儿均于术前行胸部增强及高分辨薄层 CT 检查明确肺部病灶位置及边界, 初步评估后再结合术中病灶边界行 ALR 治疗, 术后病检结果均支持 CLMs, 其中 CPAM 45 例, ILS 27 例。术后所有患儿接受至少 3 个月的随访, 并于术后 3 个月和 1 年复查胸部平扫 CT。本研究通过四川大学华西医院伦理委员会审核(编号:2020-1328), 并获得患儿家属知情同意。

二、手术方法

支气管镜引导下行健侧单肺通气, 麻醉满意后取健侧卧位。行上叶病灶切除者, 分别于腋前、中、后线第 4、7、8 肋间置入 5 mm 穿刺鞘; 行下叶和中叶病灶切除者, 穿刺鞘置入下移一肋间。建立人工气胸, 压力 4 mmHg (1 mmHg = 0.133 kPa), 流量 1 L/min。入胸腔后, 根据病灶与正常肺组织之间的自然裂、气肿样界限、离断病灶血管后的血液循环边界、肺小叶单位或迂曲增多的小血管, 判断病灶与正常肺之间的外在边界(图 1)。自肺门处打开纵隔胸膜及发育不全的叶间裂组织, 暴露出病灶相邻的肺叶静脉, 并将该静脉作为内在边界, 使用操作钳沿静脉间隙往肺内游离。游离出病灶静脉后, 使用 5 mm Hemolock 夹闭后切断。同时使用 Ligasure 或超声刀将肺静脉与外在边界之间的肺组织劈开, 深入肺内后, 游离出病灶动脉和支气管, 使用 5 mm Hemolock 夹闭后切断。继续沿肺静脉间隙向远端游离, 直至肺静脉远端, 病灶内在边界将和外在边界重合, 使用 Ligasure 或超声刀将其劈离, 完成病灶切除(图 2)。取出病灶后冲洗胸腔, 仔细检查肺组织断面, 确认无活动性出血及漏气, 鼓肺复张良好后, 于腋中线穿刺孔放置 16Fr 胸腔闭式引流管 1 根, 关闭切口。

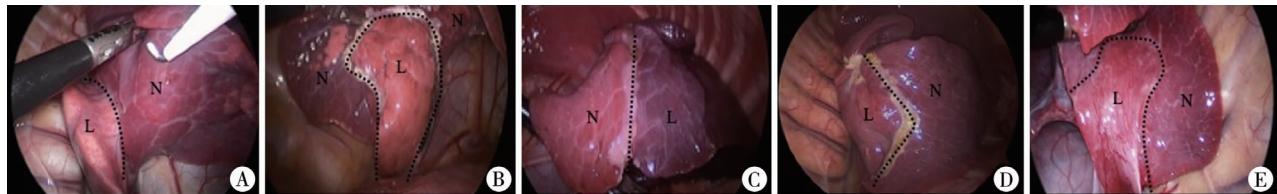


图1 1例先天性肺畸形患儿胸腔镜下解剖性病灶切除术中外在边界定位(虚线所示为病灶与正常肺组织的外在边界,L所示为病灶,N所示为正常肺组织) A:病灶与正常肺组织之间的自然裂;B:病灶呈气肿样外观,正常肺组织实变不张;C:病灶呈缺血样外观,正常肺组织颜色红润;D:病灶缺乏正常肺小叶外观;E:病灶表面存在迂曲增多的小血管

Fig. 1 External boundary orientation in operation (dotted line indicated external boundary between lesion and normal lung tissue, L denoted lesion and N normal lung tissue)

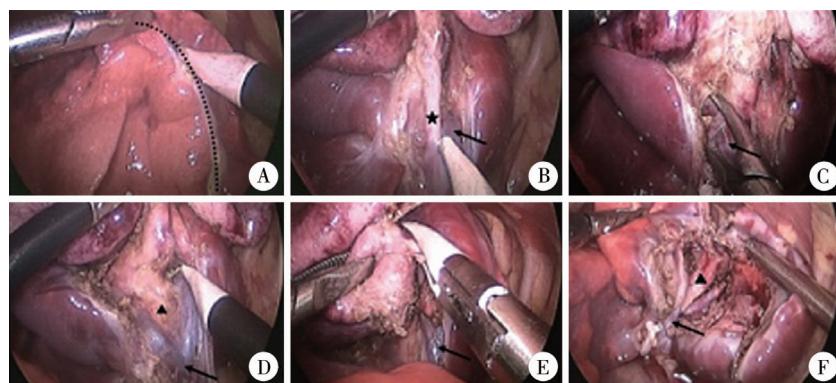


图2 1例先天性肺畸形患儿胸腔镜下解剖性病灶切除术操作步骤(虚线所示病灶边界,箭头所示肺静脉,星号所示为病灶静脉,三角形所示为支气管) A:腔镜下可见病灶与正常肺组织外在边界,使用电钩标记;B:游离出汇入肺静脉主干的病灶静脉;C:沿肺静脉表面间隙向肺内钝性游离;D:使用电钩在静脉之间游离出支气管;E:使用 Ligasure 在肺静脉表面沿外在边界将肺组织劈离;F:切除病灶后检查创面可见肺静脉和支气管

Fig. 2 Operative procedure (dotted line indicated lesion boundary, arrow pulmonary vein, asterisk lesion vein and triangle bronchi)

结 果

患儿均在胸腔镜下顺利完成手术,无一例中转开放手术。手术时间(68.2 ± 18.6)min(38~142 min);术中出血量(6.2 ± 2.4)mL,病灶直径(4.2 ± 1.7)cm。病灶位于右肺下叶38例,右肺上下叶、中下叶各2例,左肺下叶22例,左肺上叶8例。术中肉眼可见29例患儿病灶分别有1支独立的静脉、动脉、支气管;15例病灶有1支独立的静脉,未见粗大的动脉和支气管;14例病灶有2支独立的静脉和1支独立的动脉、支气管;14例病灶未

见粗大的静脉、动脉和支气管(表1)。所有患儿术中留置16Fr引流管1根,引流管拔除时间为术后(1.32 ± 0.25)d。

所有患儿术后无支气管胸膜瘘、出血、肺不张、肺部感染、病灶残留、复发、再次手术等情况发生。1例术后1个月出现气胸,予重新安置胸腔闭式引流管、保守治疗1周后愈合出院。2例术后1个月出现咳嗽、发热,胸部CT提示病灶切除位置出现规则圆形囊腔,予以抗炎等对症治疗后恢复出院。术后住院时间为(3.3 ± 0.2)d。3例术后3个月胸部CT平扫提示肺部有代偿性气肿表现,其余患儿患侧肺叶复张良好。

表1 72例行胸腔镜下解剖性病灶切除术的CLMs患儿病灶静脉、动脉、支气管分布情况

Table 1 Distribution of vein, artery and bronchus

位置	总数(例)	静脉、动脉、支气管各1支	静脉1支,未见动脉、支气管	静脉2支,动脉、支气管各1支	未见静脉、动脉、支气管
右肺下叶	38	16	8	6	8
右肺上下叶	2	0	0	2	0
右肺中下叶	2	0	0	2	0
左肺下叶	22	11	4	3	4
左肺上叶	8	2	3	1	2

注 CLMs:先天性肺畸形

讨 论

CLMs 是肺在胚胎发育过程中异常发育形成的错构瘤样畸形^[9]。其主要特点包括:第一, CLMs 是先天性疾病, 病灶通常是在母亲孕期检查时发现, 治疗时期绝大部分患儿处于婴幼儿阶段; 第二, CLMs 是一种良性结构畸形, 不同于恶性疾病的处理方式, 并且常伴有变异血管、支气管等结构; 第三, CLMs 是一种囊性疾病, 对正常肺组织常有推挤^[10-13]。因此理论上 CLMs 的最佳手术方式是沿着病灶边界完整切除病灶, 保留全部正常肺组织。而在临床工作中我们发现, 部分 CLMs 术前胸部 CT 显示病灶与正常肺组织之间存在边界, 同时, 在术中麻醉单肺通气条件下肉眼直视可以看见病灶与正常肺组织脏层胸膜存在外在边界, 而病灶的内侧位于肺门, 依靠肺静脉与正常肺组织之间形成病灶的内在边界。本研究 72 例患儿均在胸腔镜下顺利完成 ALR, 所有患儿术后无支气管胸膜瘘、出血、肺不张、肺部感染等短期并发症发生, 获得至少 3 个月随访, 无病灶残留、复发、再次手术等情况发生。

施行 ALR 需要严格掌握适应证。本院行 ALR 的患儿仅占我院同期 CLMs 手术患儿的 30%, 其余手术方式包括胸腔镜下解剖性肺叶、肺段切除术和非解剖性的楔形切除术。解剖性肺叶、肺段切除会切除部分正常肺组织, 而非解剖性的楔形切除是单纯按照病灶的外在边界进行切除, 可能由于囊性病灶对内部肺组织、血管、支气管的推挤, 导致病灶切除不完全或对正常肺组织结构的副损伤, 进而发生出血、支气管胸膜瘘等并发症^[6]。因此, 非解剖性楔形切除仅适合于病灶局限于外周, 且与正常肺组织之间存在边界的患儿。如果能通过解剖方式, 找到病灶的内在边界, 利用肉眼可区分的外在边界和解剖的内在边界联合切除, 就可能达到最理想的手术方式(即仅对病灶解剖性切除, 完整保留所有正常肺组织)。

因此, ALR 的关键点是需要找出病灶边界, 包括病灶的内在边界和外在边界, 并且经肺门入路精确处理病灶所属的血管和支气管。首先麻醉时应在支气管镜引导下作单肺通气, 胸腔镜下可见正常肺组织呈实变塌陷状态, 而病灶塌陷不完全或呈气肿样改变, 病灶与正常肺组织脏层胸膜之间可见清楚的外在边界。此外, 部分病灶与正常肺组织之间存在自然裂, 可以作为外在边界。同时在夹闭病灶血管后, 病灶颜色改变, 呈现暗红色缺血表现, 尤其

是 ILS, 在离断滋养血管后会有明显的改变。部分情况下正常肺组织肺小叶单位的存在、病灶表面迂曲、增多、扩张的血管也可辅助判断外在边界。病灶内在边界的判断是以肺静脉系统为解剖依据, 该系统类似于肝脏的 Glisson 系统, 能够作为病灶切除的标志。经肺门入路游离出病灶所在肺叶的静脉后, 沿着该静脉间隙往肺内游离, 直至静脉远端, 内在边界逐渐与外在边界重合, 此时予以 Ligasure 或超声刀劈下病灶。在沿着肺静脉游离病灶的过程中, 有汇入肺静脉的病灶静脉, 较细小的静脉可予以 Ligasure 或超声刀直接夹闭切断, 对于较粗大的静脉, 应予 Hemolock 夹闭后切断。同时在靠近肺门处有发自肺动脉、支气管的病灶动脉和支气管, 应与静脉做相同的精准处理。本研究发现术中肉眼可见的病灶血管和支气管数量存在差异, 只有术中做到对血管和支气管的精准处理, 才能保证术后无支气管胸膜瘘和出血的发生, 并保证胸腔镜解剖性病灶切除安全、有效地实施。

儿童先天性肺畸形以下叶最为多见, 本研究 72 例中, 病灶位于右肺下叶 38 例, 右肺上下叶、中下叶各 2 例, 左肺下叶 22 例, 左肺上叶 8 例, 与文献报道一致^[14]。但该术式不受限于病灶所属肺叶, 主要取决于病灶与正常肺组织是否存在边界。对于病灶位于多叶者, 行 ALR 较传统的全肺切除或多个肺段切除能够保留患儿更多的正常肺组织。Bagrodia 等^[15] 报道肺段切除和肺叶切除术后总体并发症发生率分别达 21% 和 19%, 其中术后气胸发生率分别为 10.5% 和 11.5%; 此外还有术后胸腔积液、伤口感染和积液的发生。本研究中, 1 例患儿术后 1 个月因气促行胸片检查发现气胸, 考虑是由于 Ligasure 劈肺后形成断面, 患儿哭闹后外周肺泡破裂导致漏气, 予以重新安置引流管保守治疗 1 周后愈合出院。ALR 术后气胸发生率为 2.2%, 明显低于现有文献报道水平。尽管本研究中术后无胸腔积液、伤口感染和积液等并发症发生, 但是 2 例患儿术后 1 个月因咳嗽、发热就诊于呼吸内科, 考虑支气管肺炎, 胸部 CT 提示双肺散在斑片影, 同时病灶切除位置出现规则圆形囊腔。该影像学表现尚无文献报道, 囊腔的形成考虑与术中沿着正常肺组织与病灶进行切除, 保留的正常肺组织形成卷曲, 含气囊腔的存在增加了胸腔内感染的风险有关。囊腔内会逐渐由新的肺组织和瘢痕填充, 但其转归情况仍需长期随访。2 例患儿在接受抗炎、雾化排痰等对症治疗后, 呼吸道症状缓解出院。其余患儿术后 3

个月复查胸部CT未见囊腔形成,但有3例患儿胸部CT出现代偿性气肿表现,考虑是病灶切除后正常肺组织生长代偿所致,患儿无呼吸道症状,采取继续随访观察策略,术后1年复查胸部CT,评估代偿性气肿改变情况。肺段切除术后病灶残留是较常见的并发症,Lee等^[16]和Johnson等^[17]报道肺段切除术后病灶残留率分别达5%和6.7%,其主要原因是术中对病灶边界判断欠准确,而本术式是在以肺静脉系统为内在边界和多种方式辅助的外在边界的综合判断下进行病灶切除。

综上,在严格掌握适应证的基础上,ALR是一种安全、有效的保肺手术,能够做到只切除病灶,保留全部正常肺组织。但手术操作需要沿着肺静脉系统往肺内游离,所以该术式对术者腔镜操作能力要求高,应在熟练掌握儿童胸腔镜肺叶和肺段切除术后逐步开展。患儿术后肺恢复情况仍需要长期随访评估。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

作者贡献声明 文献检索为袁森、徐畅,论文调查设计为程凯昇、杨纲,数据收集与分析为袁森、何涛贞,论文结果撰写为袁森、徐畅、杨纲,论文讨论分析为袁森、徐畅、程凯昇、何涛贞

参 考 文 献

- [1] Elhattab A, Elsaied A, Wafa T, et al. Thoracoscopic surgery for congenital lung malformations; Does previous infection really matter? [J]. J Pediatr Surg, 2021, 56(11): 1982–1987. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2021.01.036.
- [2] Zheng J, Tang H, Xu H, et al. Thoracoscopic versus open resection for symptomatic congenital pulmonary airway malformations in neonates: a decade-long retrospective study [J]. BMC Pulm Med, 2021, 21(1): 82. DOI: 10.1186/s12890-021-01445-2.
- [3] 李帅,黄格元,汤绍涛.胸腔镜解剖性肺段切除治疗先天性肺气道畸形国内外研究现状[J].中华小儿外科杂志,2021,42(2):171–176. DOI: 10.3760/cma.j.cn421158-20191117-00638.
- [4] Li S, Huang GY, Tang ST. Application of thoracoscopic anatomic segmentectomy for congenital pulmonary airway malformations: current status based upon literatures [J]. Chin J Pediatr Surg, 2021, 42(2): 171–176. DOI: 10.3760/cma.j.cn421158-20191117-00638.
- [5] Kapralik J, Wayne C, Chan E, et al. Surgical versus conservative management of congenital pulmonary airway malformation in children: A systematic review and meta-analysis [J]. J Pediatr Surg, 2016, 51(3): 508–512. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2015.11.022.
- [6] Criss CN, Musili N, Matusko N, et al. Asymptomatic congenital lung malformations: Is nonoperative management a viable alternative? [J]. J Pediatr Surg, 2018, 53(6): 1092–1097. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2018.02.065.
- [7] Wong K, Flake AW, Tibboel D, et al. Congenital pulmonary airway malformation: advances and controversies [J]. Lancet Child Adolesc Health, 2018, 2(4): 290–297. DOI: 10.1016/S2352-4642(18)30035-X.
- [8] Boucherat O, Jeannotte L, Hadchouel A, et al. Pathomechanisms of congenital cystic lung diseases: focus on congenital cystic adenomatoid malformation and pleuropulmonary blastoma [J]. Paediatr Respir Rev, 2016, 19: 62–68. DOI: 10.1016/j.prrv.2015.11.011.
- [9] Kunisaki SM, Leys CM. Surgical pulmonary and pleural diseases in children: lung malformations, empyema, and spontaneous pneumothorax [J]. Adv Pediatr, 2020, 67: 145–169. DOI: 10.1016/j.yapd.2020.03.006.
- [10] Style CC, Mehollin-Ray AR, Verla MA, et al. Accuracy of prenatal and postnatal imaging for management of congenital lung malformations [J]. J Pediatr Surg, 2020, 55(5): 844–847. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2020.01.020.
- [11] Zhang Y, Xin W, Xu C, et al. Thoracoscopic lobectomy through the pulmonary hilum approach for the treatment of congenital lung malformation [J]. Surg Endosc, 2022, 36(1): 711–717. DOI: 10.1007/s00464-021-08339-8.
- [12] 银秀春. 小儿肺隔离症的临床诊疗进展[J]. 临床小儿外科杂志, 2021, 20(1): 74–80. DOI: 10.12260/lcxewkzz. 2021.01.015.
- [13] Yin XC. Advances in diagnosis and treatment of pediatric pulmonary sequestration [J]. J Clin Ped Sur, 2021, 20(1): 74–80. DOI: 10.12260/lcxewkzz. 2021.01.015.
- [14] Park S, Kim ER, Hwang Y, et al. Serial improvement of quality metrics in pediatric thoracoscopic lobectomy for congenital lung malformation: an analysis of learning curve [J]. Surg Endosc, 2017, 31(10): 3932–3938. DOI: 10.1007/s00464-017-5425-0.
- [15] Bagrodia N, Cassel S, Liao J, et al. Segmental resection for the treatment of congenital pulmonary malformations [J]. J Pediatr Surg, 2014, 49(6): 905–909. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2014.01.021.
- [16] Lee S, Kim DH, Lee SK. Efficacy of segmental resection in patients with prenatally diagnosed congenital lung malformations [J]. Interact Cardiovasc Thorac Surg, 2017, 24(3): 425–429. DOI: 10.1093/icvts/ivw408.
- [17] Johnson SM, Grace N, Edwards MJ, et al. Thoracoscopic segmentectomy for treatment of congenital lung malformations [J]. J Pediatr Surg, 2011, 46(12): 2265–2269. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2011.09.012.

(收稿日期:2021-06-23)

本文引用格式:袁森,徐畅,程凯昇,等.胸腔镜下解剖性病灶切除术治疗儿童先天性肺畸形的初步探讨[J].临床小儿外科杂志,2022,21(7):612–616. DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202106065-003.

Citing this article as: Yuan M, Xu C, Cheng KS, et al. Preliminary study of thoracoscopic anatomic lesion resection for congenital lung malformations in children [J]. J Clin Ped Sur, 2022, 21(7): 612–616. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202106065-003.