

·专题·出生结构缺陷的早期干预·

先天性腹壁缺损性疾病产时手术的疗效与安全性研究



全文二维码

王大佳¹ 张志波¹ 白玉作² 刘彩霞³

¹ 中国医科大学附属盛京医院新生儿外科,沈阳 110004; ² 中国医科大学附属盛京医院小儿普外科,沈阳 110004; ³ 中国医科大学附属盛京医院产科,沈阳 110004

通信作者:张志波,Email:zhangzb@sj-hospital.org

【摘要】目的 探讨先天性腹壁缺损性疾病患儿产时手术的安全性与疗效。 **方法** 回顾性分析2009年1月至2021年12月中国医科大学附属盛京医院收治的70例先天性腹壁缺损患儿临床资料,包括腹裂12例,脐膨出58例;其中产时手术34例(为产时手术组),非产时手术36例(为非产时手术组)。比较两组分期手术情况、应用补片、输血与外源输血、呼吸机使用情况、切口感染、低血糖、肝功能损伤、中心静脉相关感染、抗生素使用、静脉营养时间、进奶时间、住院时间、治疗结果以及术后随访情况。**结果** 产时手术组无一例外源性输血,非产时手术组8例外源性输血,差异有统计学意义($P < 0.05$)。产时手术组分期手术3例,非产时手术组分期手术1例,差异无统计学意义($P = 0.28$)。两组各有1例应用补片修补,差异无统计学意义($P = 1.00$)。术后切口感染:产时手术组1例,非产时手术组4例,差异无统计学意义($P = 0.18$)。术后肝功能损伤:产时手术组1例,非产时手术组4例,差异无统计学意义($P = 0.18$)。产时手术组无一例中心静脉相关感染,非产时手术组有2例发生中心静脉相关感染,差异无统计学意义($P = 0.49$)。两组呼吸机支持人数比例、全肠外营养(total parenteral nutrition, TPN)时间、开奶时间、抗生素使用时间及住院时间差异均无统计学意义($P > 0.05$)。产时手术组有1例患儿放弃治疗,治愈率97.06%(33/34);非产时手术组1例死于呼吸衰竭,治愈率97.22%(35/36);差异无统计学意义($P > 0.05$)。随访6个月至13年,两组患儿身高、体重均在同龄儿童2个标准差之内,神经系统发育基本正常,无一例因肠梗阻再手术。**结论** 产时手术和非产时手术治疗先天性腹壁缺损性疾病均安全、有效。产时手术患儿无需外源性输血,可避免异体输血相关风险。

【关键词】 婴儿,新生;腹壁/外科学;胎儿期疗法

基金项目: 辽宁省重点研发计划联合计划(2020JH2/10300131);辽宁省兴辽英才计划(XLYC1908008)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202206065-007

Comparison of intrapartum versus non-intrapartum operations for congenital abdominal wall defects

Wang Dajia¹, Zhang Zhibo¹, Bai Yuzuo², Liu Caixia³

¹ Department of Neonatal Surgery, Affiliated Shengjing Hospital, Shenyang 110004, China; ² Department of Pediatric General Surgery, Affiliated Shengjing Hospital, Shenyang 110004, China; ³ Department of Obstetrics, Affiliated Shengjing Hospital, China Medical University, Shenyang 110004, China

Corresponding author: Zhang Zhibo, Email: zhangzb@sj-hospital.org

【Abstract】Objective To compare the safety and efficacy of intrapartum operation with those of non-intrapartum operation in neonates with congenital abdominal wall defects. **Methods** From January 2009 to December 2021, clinical data were retrospectively for 70 neonates with congenital abdominal wall defects. There were gastroschisis ($n = 12$) and omphalocele ($n = 58$). Intrapartum ($n = 34$) and non-intrapartum ($n = 36$) operations were performed. Staging operation, mesh application, blood transfusion, exogenous blood transfusion, ventilator use, incision infection, hypoglycemia, liver damage, central vein-related infection, antibiotic use, intra-venous nutrition time, feeding time, length of hospital stay, recovery and postoperative follow-ups were compared between two groups. **Results** There were zero and eight cases of exogenous transfusion in intrapartum and non-intrapartum operation groups ($P < 0.05$). Umbilical cord blood transfusion was performed in intrapartum

operation group ($n=4, P=0.25$)。And there were three and one case of staging operation in intrapartum and non-intrapartum operation groups ($P=0.28$)。Patch repair was performed ($n=1$ each, $P=1.00$)。Postoperative incision infection occurred in one and four cases in intrapartum and non-intrapartum operation groups ($P=0.18$) and the difference was not statistically significant。There were zero and two cases with central vein-related infection in intrapartum and non-intrapartum operation groups ($P=0.49$) and the difference was not statistically significant。No significant inter-group differences existed in ventilator support, TPN time, milk opening time, antibiotic use or hospital stay。Intrapartum operation group had a curative rate of 97.06% (one neonate withdrawing from the hospital) and non-intrapartum operation group had a curative rate of 97.22% (one neonate death due to respiratory failure); the difference was not statistically significant。Follow-up results showed that height and weight in two groups were within two standard deviations of each other for children of the same age。The development of nervous system was normal and there was no case of reoperation for intestinal obstruction。

Conclusion Intrapartum and non-intrapartum operations are equally safe and effective for treating congenital abdominal wall defects。Neonates undergoing intrapartum operation do not need exogenous blood transfusion to avoid risks associated with allogeneic blood transfusion。

【Key words】 Infant, Newborn; Abdominal Wall/SU; Fetal Therapies

Fund program: Key Research & Development Project of Liaoning Province (2020JH2/10300131); Revitalization of Liaoning Provincial Talent Program (XLYC1908008)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202206065-007

先天性腹壁缺损性疾病主要包括腹裂和脐膨出,腹裂发病率为 $2/10\ 000 \sim 4.9/10\ 000$,脐膨出产前诊断阴性率为 $1/4\ 000 \sim 1/3\ 000^{[1-2]}$ 。腹裂胎儿的肠管暴露于羊水中,可引发肠道炎症和肠壁增厚,出生后可引发肠道功能障碍,甚至导致酸中毒和多器官功能衰竭。腹裂可合并肠旋转不良、肠闭锁、隐睾等^[3]。脐膨出中35%为巨型脐膨出,可合并染色体异常以及心脏、胃肠道、泌尿生殖系统、骨骼肌肉和神经系统畸形。先天性腹壁缺损性疾病如未合并染色体异常或严重心肺畸形,存活率可达90%~97%^[4]。本病的治疗主要是还纳脏器和修补腹壁缺损,目前本病最佳手术时机尚存在争议^[5-6]。随着产前诊断技术和围产期多学科一体化管理程度的提高,产时手术(intrapartum operation, IO)治疗先天性腹壁缺损性疾病成为可能^[7-8]。本研究旨在初步探讨产时手术和非产时手术两种手术治疗先天性腹壁缺损性疾病的 safety 与疗效。

材料与方法

一、研究对象

回顾性分析2009年1月至2021年12月中国医科大学附属盛京医院收治的70例先天性腹壁缺损患儿临床资料。其中腹裂12例,脐膨出58例。产时手术34例(为产时手术组),非产时手术36例(为非产时手术组)。产时手术适应证:①产前诊断明确;②无染色体异常及严重心脏畸形;③患儿母

亲无严重基础疾病;④患儿父母知情同意。非产时手术组主要为院外转诊患儿。本研究中所有患儿术前均经多学科会诊,产前诊断明确。两组患儿性别、首诊胎龄、出生胎龄、出生体重、术前是否存在肠管损伤和合并畸形情况比较,差异均无统计学意义($P>0.05$),见表1。本研究经中国医科大学附属盛京医院伦理委员会审核批准(No. 2018PS20K),患儿监护人知情并签署同意书。

二、手术方法

1. 产时手术:34例患儿接受产时手术,均在断脐前气管插管,保护腹部病变,断脐后转至同一手术间的新生儿手术床,留脐带血。予吸痰、连接麻醉机、机械通气、加温毯保温、迅速擦拭身体、建立上肢静脉通道、留置胃肠减压和尿管。根据脱出脏器情况予个体化治疗,手法扩张腹壁,由脊柱两侧向前腹壁裂口处用手缓慢反复用力扩张,逐渐扩张腹腔容积。轻柔顺行肠管减压,还纳脱出肠管,逐层缝合腹壁。术后患儿转入新生儿重症监护病房,行全肠外营养(total parenteral nutrition, TPN)及抗炎等对症支持治疗。对经评估无法一期还纳的腹裂患儿,应用Silo袋,将肠管按照顺序放入袋内,袋口经腹裂固定于腹腔腹膜面。转回病房后用Silo袋垂直悬吊于脐部上方,袋内肠管在重力作用下逐渐回纳入腹腔,期间注意肠管血运,避免感染,一般1周左右行二期修补手术。注意是否合并消化道畸形,同时给予纠治手术。

2. 非产时手术:本研究中36例非产时手术患

表1 先天性腹壁缺损性疾病产时手术组与非产时手术组患儿基本资料比较

Table 1 Comparison of basic profiles between intrapartum and non-intrapartum operations for congenital abdominal wall defects

组别	例数	性别[例(%)]		首诊胎龄 [M(Q ₁ , Q ₃), 周]	出生胎龄 [M(Q ₁ , Q ₃), 周]	出生体重 [M(Q ₁ , Q ₃), g]	术前肠管损伤 [例(%)]	合并畸形 [例(%)]
		男	女					
产时手术组	34	19 (55.88)	15 (44.12)	23.00 (15.00, 24.00)	38.00 (37.00, 38.15)	2 900.00 (2 490.00, 3 310.00)	0(0.00)	15(44.12)
非产时手术组	36	22 (61.11)	14 (38.89)	20.00 (19.00, 24.00)	38.00 (35.65, 38.15)	2 910.00 (2 515.00, 3 250.00)	2(5.56)	20(55.56)
统计值		0.20		-0.34		-1.15	-0.06	-
P值		0.66		0.73		0.25	0.95	0.49
								0.92
								0.34

儿均为外院出生后转入本院,综合评估患儿一般状态、脱出或膨出脏器大小及污染程度,经术前准备后根据具体情况采取一期或分期手术。术后处理同产时手术。

三、资料收集

分别记录两组患儿是否行分期手术、应用补片、输血或外源输血、使用呼吸机,有无切口感染、低血糖、肝功能损伤、中心静脉置管相关感染,以及抗生素使用情况、静脉营养时间、进奶时间、住院时间、治疗结果等。随访患儿术后6个月至13年的生长发育情况,包括身高、体重、智力发育、认知发育、是否再手术等。

四、统计学处理

采用SPSS 23.0进行统计学分析。首诊胎龄、出生胎龄、出生体重、呼吸机使用时间、抗生素使用时间、静脉营养使用时间、进奶时间和住院时间属于连续性变量,经正态分布检验提示以上变量均为非正态分布,以 $M(Q_1, Q_3)$ 表示,两样本均数的比较采用非参数检验;术前肠管损伤、是否应用补片、中心静脉置管相关感染和治愈情况属于分类变量,且卡方检验理论频数 < 1 ,故两样本率的比较采用Fisher确切概率法。性别、合并畸形属于分类变量,且卡方检验理论频数 > 1 ,两样本率的比较采用 χ^2 检验。 $P < 0.05$ 表示差异有统计学意义。

结 果

一、产时手术组与非产时手术组患儿手术情况比较

产时手术组无一例外源性输血,非产时手术组8例外源性输血,差异有统计学意义($P < 0.05$)。产时手术组分期手术3例,非产时手术组1例,差异无统计学意义($P = 0.28$)。两组各有1例应用补片修补,差异无统计学意义($P = 1.00$)。术后切口感

染:产时手术组1例,非产时手术组4例,差异无统计学意义($P = 0.18$)。术后肝功能损伤:产时手术组1例,非产时手术组4例,差异无统计学意义($P = 0.18$)。产时手术组无一例中心静脉置管相关感染,非产时手术组出现2例,差异无统计学意义($P = 0.49$)。两组呼吸机支持人数比例、TPN时间、开奶时间、抗生素使用时间及住院时间差异均无统计学意义($P > 0.05$)。产时手术组33例治愈,治愈率97.06% (33/34);非产时手术组1例死于呼吸衰竭,35例治愈,治愈率97.22% (35/36);两组差异无统计学意义($P > 0.05$)。见表2。

二、随访结果

两组患儿身高、体重均在同龄儿童2个标准差之内,智力发育和认知发育与同龄儿童基本一致,神经系统发育基本正常,无一例因肠梗阻再手术病例。

讨 论

产时手术指对于有先天性出生缺陷的胎儿在其娩出过程中及娩出后立即进行出生缺陷矫正的新生儿手术,即在产房内对畸形儿进行及时早期手术干预,包括胎盘支持的产时手术(operation on placental support, OOPS)、子宫外产时处理(ex utero intrapartum treatment, EXIT)及断脐后产房外科手术(delivery room surgery, DRS)。产时手术适用于在分娩后即刻加重新生儿损伤、甚至致命,但不会对胎儿在子宫内生长造成死亡危险的出生缺陷疾病。目前先天性腹壁缺损性疾病的治疗以手术修补为主,然而新生儿出生后的最佳手术时机尚存在争议。

腹裂是指腹腔内肠管通过脐环的一侧腹壁缺损脱出于腹腔外。产时手术由于腹腔内脏气体较少,降低了手术难度。大多数腹裂患儿在胎内突出腹壁的肠管并未受损,所以出生后应立即给予保

表2 两组先天性腹壁缺损性疾病产时或非产时手术情况及预后比较

Table 2 Comparison of intrapartum versus non-intrapartum operations for congenital abdominal wall defects

组别	例数	分期手术 [例(%)]	应用补片 [例(%)]	输血 [例(%)]	外源性输血 [例(%)]	使用呼吸机 [例(%)]	呼吸机使用时间 [M(Q ₁ , Q ₃), h]	低血糖 [例(%)]
产时手术组	34	3(8.82)	1(2.94)	4(11.76)	0(0.00)	9(26.47)	17.50 (41.25,140.00)	3(8.82)
非产时手术组	36	1(2.78)	1(2.78)	8(22.22)	8(22.22)	6(16.67)	17.00 (21.00,65.50)	6(16.67)
统计值		1.19	-	1.35	8.53	1.00	0.52	0.96
P值		0.28	1.00	0.25	< 0.05	0.32	0.56	0.33
组别	切口感染 [例(%)]	肝功能损伤 [例(%)]	中心静脉置管 相关感染 [例(%)]	抗生素使用时间 [M(Q ₁ , Q ₃), d]	静脉营养时间 [M(Q ₁ , Q ₃), d]	进奶时间 [M(Q ₁ , Q ₃), d]	住院时间 [M(Q ₁ , Q ₃), d]	
产时手术组	1(2.94)	1(2.94)	0(0.00)	5.50 (4.00,11.00)	4.00 (0.00,11.00)	6.00 (4.00,11.00)	9.00 (7.00,19.00)	
非产时手术组	4(11.11)	4(11.11)	2(5.56)	6.00 (4.00,12.50)	6.00 (0.00,10.50)	5.00 (2.00,9.50)	10.00 (7.00,18.50)	
统计值	1.76	1.76	-	-0.60	-1.13	-0.64	-0.94	
P值	0.18	0.18	0.49	0.55	0.26	0.52	0.35	

温、保湿。腹裂胎儿分娩后,随着肠管外置空气中时间延长,肠管发生污染、水肿,甚至缺血、坏死的概率增加,患儿全身情况迅速恶化,甚至失去手术治疗机会^[9]。先天性腹壁缺损产前在B超下可以诊断,因此一旦确诊,可在产时立即施行手术还纳,使患儿出生后立即获得良好的外科处理,提高其存活率^[10]。

脐膨出属于腹壁发育不全的一种,在脐带周围发生缺损,腹腔内脏器由此膨出体外。根据产前评估,对于可一期修补的脐膨出患儿,一般出生后应立即转至新生儿手术台,全麻成功后,行脐膨出囊膜切除、一期关闭修补、脐部整形术。患儿吸入气体少,腹壁松软,不需转运,可避免囊膜破裂,增加一期手术成功率^[11]。同时应关注腹腔压力过大的问题,避免腹腔间室综合征^[12~13]。对于巨大缺损、低体重、合并严重心脏畸形的患儿,可采取延期手术关闭修补。

关于腹裂和脐膨出,目前观点是并不推荐剖宫产,产前诊断明确的孕妇担心患儿脏器损伤,大多要求剖宫产,仅有小部分孕妇选择顺产,或早产自然分娩。腹裂是产时手术的绝对适应证;巨型脐膨出产时手术存在争议。本中心开展的巨型脐膨出产时手术大多可一期还纳,个别无法缝合肌层者可应用生物补片,随访效果良好。这可能是产时手术优势之一,尚需更多病例来证明。断脐前气管插管可避免气体进入膨出肠管,降低还纳脏器难度,增加手术成功率。目前本中心技术熟练,配合默契,但作者认为此操作并非必须,需要根据医生技术和

团队习惯以及医疗设备等条件决定。

本研究两组中外源性输血的人数比例差异具有统计学意义。4例产时手术患儿需要输血,并且均为脐带血;而8例非产时手术患儿需要输血,均为外源性输血。虽然产时手术组需要输血的病例少于非产时手术组,但差异无统计学意义,产时手术患儿输血为脐带血,避免了外源性输血相关风险及并发症的发生。本研究中2例非产时手术患儿存在术前肠管损伤,增加了手术难度,术后恢复时间长。产时手术组合并畸形15例,占44.12%;非产时手术组合并畸形20例,占55.56%。分析原因,主要是产时手术组经明确产前诊断,对于合并染色体异常和严重心肺畸形者采取了终止妊娠的策略。产时手术组3例(8.82%)采取了分期手术,在患儿转移至同一手术间的新生儿手术床上后,立即评估患儿一期手术的可行性,对于一期还纳困难的患儿,不强求一次手术成功,而以患儿安全为主,采用分期手术方案。

在术后治疗过程中,产时手术组1例发生切口感染,为腹裂早产儿,存在张力缝合,经局部换药后痊愈;非产时手术组4例发生切口感染,明显多于非产时手术组。产时手术组低血糖3例,少于非产时手术组的6例;肝功能损伤在产时手术组有1例,少于非产时手术组的4例。产时手术组无一例中心静脉置管相关感染。在抗生素使用时间、静脉营养使用时间、住院时间上比较,产时手术组均比非产时手术组时间更短,更具优势。两组治愈率均达到97%,说明产时手术与非产时手术均具有良好的治

疗效果。通过门诊和电话随访,两组患儿身高、体重均在同龄儿童2个标准差之内,神经系统发育基本正常,无一例因肠梗阻再手术病例。患儿家长对治疗效果整体满意,本组病例目前仍在多学科随访中^[14-15]。

本研究在设计上仍存在一些不足。首先,本研究为回顾性研究,在病例纳入过程中没有严格遵循随机化原则,可能出现选择性偏倚。其次,本研究的样本量相对较小,没有对腹裂和脐膨出进行分组研究,没有对简单型和复杂型腹裂进行分组,也没有对小型脐膨出和巨型脐膨出进行分组^[16]。今后还需要通过多中心前瞻性随机对照研究来进一步证实本研究结论。

综上所述,产时手术治疗先天性腹壁缺损性疾病安全有效,可尽早干预、中断病理状态的进一步发展。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

作者贡献声明 文献检索为王大佳,论文调查设计为王大佳、张志波,数据收集与分析为王大佳、刘芳华、岳鹏、金铭新、王璐,论文结果撰写为王大佳,论文讨论分析为王大佳、张志波、白玉作、刘彩霞

参 考 文 献

- [1] 中华医学会小儿外科学分会新生儿外科学组. 常见胎儿结构畸形产前咨询儿外科专家共识[J]. 中华小儿外科杂志, 2020, 41(12): 1057-1068. DOI: 10.3760/cma.j.cn421158-20200228-00126.
- [2] Neonatal Surgery Group, Pediatric Surgery Society, Chinese Medical Association. Pediatric Surgical Expert Consensus on Prenatal Consultation for Common Fetal Structural Abnormalities [J]. Chin J Pediatr Surg, 2020, 41(12): 1057-1068. DOI: 10.3760/cma.j.cn421158-20200228-00126.
- [3] Khan FA, Hashmi A, Islam S. Insights into embryology and development of omphalocele [J]. Semin Pediatr Surg, 2019, 28(2): 80-83. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2019.04.003.
- [4] Oakes MC, Porto M, Chung JH. Advances in prenatal and perinatal diagnosis and management of gastroschisis [J]. Semin Pediatr Surg, 2018, 27(5): 289-299. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2018.08.006.
- [5] Wissanji H, Puligandla PS. Risk stratification and outcome determinants in gastroschisis [J]. Semin Pediatr Surg, 2018, 27(5): 300-303. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2018.08.007.
- [6] Petrosyan M, Sandler AD. Closure methods in gastroschisis [J]. Semin Pediatr Surg, 2018, 27(5): 304-308. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2018.08.009.
- [7] Chen XY, Yang JX, Zhang HY, et al. Ex utero intrapartum treatment for giant congenital omphalocele [J]. World J Pediatr, 2018, 14(4): 399-403. DOI: 10.1007/s12519-018-0129-7.
- [8] Shi CR, Cai W, Wang J, et al. A novel approach to treating neonatal abnormalities in an earlier stage - Feasibility of delivery room surgery system [J]. J Clin Pediatr, 2005, 23(2): 98-100. DOI: 10.3969/j.issn.1000-3606.2005.02.012.
- [9] Verla MA, Style CC, Olutoye OO. Prenatal diagnosis and management of omphalocele [J]. Semin Pediatr Surg, 2019, 28(2): 84-88. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2019.04.007.
- [10] Beaudoin S. Insights into the etiology and embryology of gastroschisis [J]. Semin Pediatr Surg, 2018, 27(5): 283-288. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2018.08.005.
- [11] Bhat V, Moront M, Bhandari V. Gastroschisis: A State-of-the-Art Review [J]. Children (Basel), 2020, 7(12): 302. DOI: 10.3390/children7120302.
- [12] Gonzalez KW, Chandler NM. Ruptured omphalocele: Diagnosis and management [J]. Semin Pediatr Surg, 2019, 28(2): 101-105. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2019.04.009.
- [13] Tauriainen A, Sankilampi U, Raitio A, et al. The association of perinatal and clinical factors with outcomes in infants with gastroschisis-a retrospective multicenter study in Finland [J]. Eur J Pediatr, 2021, 180(6): 1875-1883. DOI: 10.1007/s00431-021-03964-w.
- [14] Wang P, Huang SJ, Qin Q, et al. Application of one-stage operation for severe abdominal wall defect and postoperative abdominal pressure variations [J]. J Clin Ped Sur, 2018, 17(2): 122-125. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2018.02.009.
- [15] Baerg JE, Munoz AN. Long term complications and outcomes in omphalocele [J]. Semin Pediatr Surg, 2019, 28(2): 118-121. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2019.04.004.
- [16] Emil S. Surgical strategies in complex gastroschisis [J]. Semin Pediatr Surg, 2018, 27(5): 309-315. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2018.08.003.

(收稿日期:2022-06-30)

本文引用格式:王大佳,张志波,白玉作,等.先天性腹壁缺损性疾病产时手术的疗效与安全性研究[J].临床小儿外科杂志,2022,21(9):833-837. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202206065-007.

Citing this article as: Wang DJ, Zhang ZB, Bai YZ, et al. Comparison of intrapartum versus non-intrapartum operations for congenital abdominal wall defects [J]. J Clin Ped Sur, 2022, 21(9): 833-837. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202206065-007.