

· 病例报告 ·

胎儿巨大骶尾部畸胎瘤宫外产时处理 1 例



全文二维码

赵杭燕¹ 诸纪华² 王金湖³ 钊金法⁴ 徐玮泽⁵ 李映⁵ 罗琼⁶ 徐红艳⁷

¹ 浙江大学医学院附属儿童医院儿外科手术室 国家儿童健康与疾病临床医学研究中心, 杭州 310052; ² 浙江大学医学院附属儿童医院护理部 国家儿童健康与疾病临床医学研究中心, 杭州 310052; ³ 浙江大学医学院附属儿童医院肿瘤外科 国家儿童健康与疾病临床医学研究中心, 杭州 310052; ⁴ 浙江大学医学院附属儿童医院新生儿外科 国家儿童健康与疾病临床医学研究中心, 杭州 310052; ⁵ 浙江大学医学院附属儿童医院心脏外科 国家儿童健康与疾病临床医学研究中心, 杭州 310052; ⁶ 浙江大学医学院附属妇产科医院产科, 杭州 310006; ⁷ 浙江大学医学院附属妇产科医院手术室, 杭州 310006

通信作者: 徐红艳, Email: xuhongy@zju.edu.cn

A case report of fetal giant sacrococcygeal teratoma during exutero intrapartum treatment

Zhao Hangyan¹, Zhu Jihua², Wang Jinhua³, Tou Jinfa⁴, Xu Weize⁵, Li Die⁵, Luo Qiong⁶, Xu Hongyan⁷

¹ Department of Pediatric Surgery Operating Room, the Children's Hospital, Zhejiang University School of Medicine, National Clinical Research Center For Child Health, Hangzhou 310052, China; ² Department of Nursing, the Children's Hospital, Zhejiang University School of Medicine, National Clinical Research Center For Child Health, Hangzhou 310052, China; ³ Department of Surgical Oncology, the Children's Hospital, Zhejiang University School of Medicine, National Clinical Research Center For Child Health, Hangzhou 310052, China; ⁴ Department of Neonatology, the Children's Hospital, Zhejiang University School of Medicine, National Clinical Research Center For Child Health, Hangzhou 310052, China; ⁵ Department of Cardiac Surgery, the Children's Hospital, Zhejiang University School of Medicine, National Clinical Research Center For Child Health, Hangzhou 310052, China; ⁶ Department of Obstetrics, Women's Hospital, Zhejiang University School of Medicine, Hangzhou 310006, China; ⁷ Department of Operating Room, Women's Hospital, Zhejiang University School of Medicine, Hangzhou 310006, China

Corresponding author: Xu Hongyan, Email: xuhongy@zju.edu.cn

【摘要】 骶尾部畸胎瘤是胎儿期常见肿瘤之一, 巨大畸胎瘤可能增加胎儿心脏负荷, 导致胎儿水肿、心功能衰竭等严重问题。宫外产时处理最初应用于胎儿严重膈疝(fetoscopic endoluminal tracheal occlusion, FETO)手术后气管内堵塞物的取出, 之后应用范围逐步扩大, 对胎儿气道梗阻或心肺功能不全发挥了重要作用。本文报告 1 例应用宫外产时处理技术治疗的胎儿巨大骶尾部畸胎瘤合并心功能衰竭, 探讨骶尾部畸胎瘤宫外产时处理的应用指征, 总结宫外产时处理的围术期管理要点。

【关键词】 畸胎瘤; 骶尾部; 分娩; 产时手术

基金项目: 浙江省教育厅科研项目(Y202250090); 浙江省基础公益研究计划项目(GF22F039295)

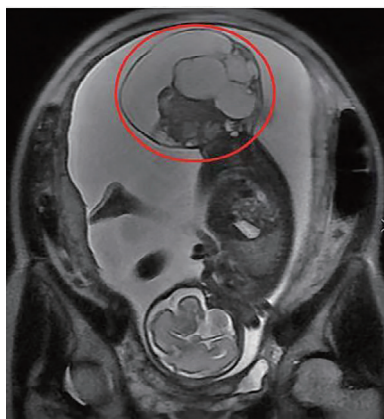
DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202201032-019

畸胎瘤是胎儿期常见肿瘤之一, 骶尾部是其好发部位^[1]。骶尾部畸胎瘤(sacrococcygeal teratoma, SCT)约占胎儿畸胎瘤的 70%, 活产儿发病率为 1/40 000 ~ 1/20 000^[2]。根据其组织分化程度, 可将畸胎瘤分为成熟畸胎瘤和未成熟畸胎瘤。手术完整切除是获得良好预后的关键。巨大骶尾部畸胎瘤, 尤其是实性成分为主的畸胎瘤, 因瘤体对血供的需求显著增加, 常在骶尾骨前形成粗大的供血动脉和回流静脉, 显著增加胎儿心脏负荷, 即“盗血”现象, 导致胎儿贫血、

胎儿水肿、胎盘水肿, 危及胎儿和孕妇生命安全^[3-4]。产时宫外治疗(ex-utero intrapartum treatment, EXIT)又称为胎盘支持下的手术(operation on placental support, OOPS), 其基本过程是将胎儿部分或者全部娩出子宫, 保持胎盘循环, 直到胎儿气道稳定或相关手术结束^[5]。整个过程需要产科、儿外科、麻醉科、超声、新生儿监护等多学科团队紧密合作。本文报道由浙江大学医学院附属儿童医院、浙江大学医学院附属妇产科医院联合应用 EXIT 技术治疗的 1 例巨大骶尾部畸胎

瘤合并心功能衰竭病例,探讨 EXIT 技术在胎儿骶尾部畸胎瘤的应用指征,总结围术期管理要点。

患者女,25 岁,因“停经 31⁺6 周、发现胎儿骶尾部肿物 3 月余”,以“试管婴儿、宫内早孕、单活胎、胎儿骶尾部畸胎瘤”入院。超声检查显示羊水指数 35.4 cm,脐动脉胎儿脐动脉收缩压/舒张压 (systolic pressure/diastolic pressure, S/D) 比值 2.6,胎盘后壁 Gr1 级,头位,脐带绕颈两周,骶尾部见 14.2 cm × 16.5 cm × 11.0 cm 囊实性包块,向外膨起,实性部分可见血流。MRI 检查提示胎儿骶尾部囊实性肿块,考虑骶尾部畸胎瘤 (I 型),见图 1。胎儿心脏超声提示右心衰竭。经产科、儿外科、新生儿科、新生儿重症医学科、超声科、麻醉科、手术室多学科联合讨论,决定行子宫下段剖宫产 + 宫外产时胎儿骶尾部畸胎瘤切除术。常规娩出胎儿,宫腔予以自制水囊填塞,循环灌注温生理盐水维持宫腔压力防止胎盘剥离。胎儿娩出后置于母亲双腿间,保护脐带在胎盘循环支持下完成骶尾部畸胎瘤切除,肿瘤切除后行胎儿气管插管,然后断脐带。



注 胎儿骶尾部巨大混杂信号占位,红色浅框示胎儿骶尾部巨大混杂信号占位

图 1 1 例骶尾部畸胎瘤胎儿 MR 检查结果
Fig. 1 MR Images of children with teratoma

手术过程顺利,EXIT 用时 32 min,新生儿 Apgar 评分 8 分,体重 2 210 g,畸胎瘤重 2 065 g。术中母亲生命体征平稳,EXIT 过程中有子宫收缩欠佳,予卡贝缩宫素注射液 100 μg 静脉推注、子宫壁注射卡前列素氨丁三醇注射液 250 μg 后仍较疲软,予按摩子宫,并行宫腔碘仿纱条填塞,末端留置于阴道内,术中出血约 800 mL。术后产妇送回监护病房,新生儿转运至新生儿科监护病房。产妇术后 5 d 出院,新生儿术后 19 d 出院。出院后产妇门诊随访 1 月余,无阴道出血,血糖水平控制在正常范围;新生儿随访 1 年,骶尾部伤口愈合良好,无肿瘤复发,体重增长正常。

讨论 产时外科处理的基本过程是胎儿娩出后不断脐带,利用胎盘循环对胎儿的支持来完成手术,最初应用于胎儿严重膈疝 FETO 术后气管内堵塞物的取出,后扩展到伴有气道压迫的疾病如颈部畸胎瘤、淋巴管畸形的治疗。随着产时外科处理技术的逐步成熟,其应用范围进一步扩大,在胎儿存在气道压迫和心肺功能不稳定的情况下均可考虑应

用^[6]。巨大骶尾部畸胎瘤 (尤其是实质性成分体积大的畸胎瘤) 因瘤体对血供的需求显著增加,发生“盗血”现象,严重时可能导致胎儿心功能衰竭甚至胎儿死亡。有研究表明孕 30 周前可诊断的胎儿骶尾部畸胎瘤患儿病死率显著高于孕 30 周后诊断的患儿,原因是孕 30 周前发现的畸胎瘤后期往往体积巨大,常需宫内手术干预^[7]。本团队也曾收治过娩出不久后死亡的巨大骶尾部畸胎瘤患儿。在巨大骶尾部畸胎瘤合并心功能衰竭时,应用 EXIT 可以利用胎盘灌注降低胎心负荷,保障患儿平稳渡过手术应激期。此外,胎盘循环支持下行巨大骶尾部肿瘤切除术,可以增加胎儿对术中出血的耐受,保障患儿安全^[8-9]。本例患儿顺利完成手术,术中、术后均无需输血支持,术后恢复良好。

EXIT 需要胎盘循环支持,意味着增加了母体发生出血等并发症的概率,这就要求我们严格把握适应证,充分考虑胎儿获益和母体风险之间的平衡,不应将 EXIT 常规应用于胎儿骶尾部畸胎瘤切除术,只有胎儿存在明显心功能不全或胎儿水肿等严重威胁胎儿安全的情况,才是 EXIT 的适应证^[10]。

手术前的实地模拟演练非常重要,可以有效发现术前准备的缺漏环节,同时也可以明显提高团队配合的协同性和默契度^[11]。本例患儿手术前治疗团队组织手术室实地模拟演练 3 次,熟悉手术室环境和手术流程,设计手术台及无菌台的放置、仪器设备及其他物品的放置、人员站位等,并共同讨论和制定了胎盘早剥、胎盘循环不稳定、胎儿气管插管以及产妇大出血等可能状况的处置预案。

防止胎盘过早剥离是保持胎盘灌注的重点工作,也是决定胎儿手术能够平稳完成的前提^[12]。EXIT 过程中既要防止子宫收缩、胎盘过早剥离,又要预防宫缩乏力导致大出血,手术过程中应严密监测术中母体血流动力学情况,保持其循环稳定,术前建立两条静脉通路并行桡动脉血压持续监测^[13]。本例中团队在胎儿娩出的同时应用自制宫腔水囊填塞宫腔,循环灌注温生理盐水 3 000 mL 维持宫腔压力,对延缓胎盘剥离和预防大出血的发生起到了较好的作用。对于手术后期宫缩乏力引起的出血,可以应用促宫缩药物、子宫按摩以及纱布填塞等方法处理。

保护脐带是保持胎盘灌注、保障 EXIT 顺利实施的另一个重要环节。由于胎儿脐带长度的限制,产科团队将胎儿从子宫娩出后,胎儿俯卧于母体大腿间,头朝向母体足部方向完成骶尾部肿瘤切除。该过程必须严密保护脐带,避免脐带受压,注意脐带的搏动,防止脐带过度牵拉和扭曲。应尽量将脐带置于产妇双腿凹陷处避免直接压迫,同时要给予温盐水纱布覆盖保护,待畸胎瘤切除完成后断脐^[14]。

胎儿骶尾部畸胎瘤切除术中应密切监测胎儿生命体征,也要注意保持术野全程无菌。胎儿娩出后,在胎儿上半身加铺无菌巾覆盖,胎儿上半身包括头部、胸部和上肢处于上下两层无菌巾之中,此区域交由胎儿麻醉团队和超声团队完成胎心、血氧饱和度等的监测,也方便紧急胎盘剥离和大出血抢救时快速完成气管插管;胎儿腰腹部以下包括腰部、臀部

及下肢,始终保持在产妇的无菌区域,进行骶尾部肿瘤切除时无需再次消毒铺巾。

胎儿低体温也是 EXIT 过程中需要关注的问题。胎儿皮下脂肪少、体温调节中枢欠成熟,娩出后体表暴露范围大且被羊水湿润,容易发生低体温。术前应适当升高手术室温,建议调至 26℃;产妇两腿间可放置充气式保温毯,所有液体管路均使用输液加温仪,术中严密监测产妇及胎儿生命体征。本例术中未发生低体温。

另外,EXIT 过程中治疗团队人数、操作步骤和手术器械均较多,要求团队严格执行无菌原则,加强手术间人员管理,禁止非手术参与人员进入,减少手术间内人员流动,严格预防和控制医院感染的发生。

综上所述,EXIT 在胎儿娩出宫外后不断脐带、保持胎盘灌注状态下对胎儿进行手术和处理,为存在严重气道梗阻和心肺功能障碍的胎儿提供了治疗机会。对骶尾部巨大畸胎瘤合并心功能衰竭可考虑应用 EXIT 技术。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突

作者贡献声明 赵杭燕、王金湖负责研究的设计、实施和起草文章;赵杭燕、王金湖、罗琼、徐红艳进行病例数据收集及分析;诸纪华、徐玮泽、钊金法、李昶、徐红艳负责研究设计与酝酿,并对文章知识性内容进行审阅

参 考 文 献

- [1] 张金哲. 张金哲小儿外科学[M]. 北京:人民卫生出版社, 2013:1126-1133.
Zhang JZ. Zhang jinzhe pediatric surgery[M]. Beijing: People's Medical Publishing House, 2013:1126-1133.
- [2] 郑珊. 实用新生儿外科学[M]. 北京:人民卫生出版社, 2013:232.
Zheng S. Practical neonatal surgery[M]. Beijing: People's Medical Publishing House, 2013:232.
- [3] 王展,唐达星. 胎儿骶尾部畸胎瘤的预后评估研究进展[J]. 中华小儿外科杂志, 2016, 37(9): 706-710. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 0253-3006. 2016. 09. 016.
Wang Z, Tang DX. Advances in prognostic assessments of fetal sacrococcygeal teratoma[J]. Chin J Pediatr Surg, 2016, 37(9): 706-710. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 0253-3006. 2016. 09. 016.
- [4] Finamore PS, Kontopoulos E, Price M, et al. Mirror syndrome associated with sacrococcygeal teratoma: a case report[J]. J Reprod Med, 2007, 52(3): 225-227.
- [5] 李欢,刘彩霞. 产时胎儿手术的最新进展[J]. 实用妇产科杂志, 2016, 32(6): 401-404.
Li H, Liu CX. Recent advances in prenatal fetal surgery[J]. J Prac Obstet Gynecol, 2016, 32(6): 401-404.
- [6] 余东海,冯杰雄. 产时手术治疗先天性畸形的现状与展望[J]. 临床外科杂志, 2015, 23(11): 805-808. DOI: 10. 3969/j. issn. 1005-6483. 2015. 11. 001.
Yu DH, Feng JX. Present status and future prospects of surgery for congenital malformations during labor[J]. J Clin Surg, 2015, 23(11): 805-808. DOI: 10. 3969/j. issn. 1005-6483. 2015. 11. 001.
- [7] Flake AW, Harrison MR, Adzick NS, et al. Fetal sacrococcygeal teratoma[J]. J Pediatr Surg, 1986, 21(7): 563-566. DOI: 10. 1016/S0022-3468(86)80404-3.
- [8] 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.
Group of Neonatal Surgery, Branch of Pediatric Surgery, Chinese Medical Association. Pediatric Surgical Expert Consensus on Prenatal Consultations for Common Fetal Structural Abnormalities[J]. Chin J Pediatr Surg, 2020, 41(12): 1057-1068. DOI: 10. 3760/cma. j. cn421158-20200228-00126.
- [9] 李欢,孙颖,李秋玲,等. 行产时手术的出生缺陷儿的预后随访分析[J]. 中国医科大学学报, 2011, 40(4): 327-330. DOI: CNKI:21-1227/R. 20110426. 1528. 004.
Li H, Sun Y, Li QL, et al. Follow-up analysis of outcomes of infants undergoing intrapartum surgery for birth defects[J]. J China Med Univ, 2011, 40(4): 327-330. DOI: CNKI: 21-1227/R. 20110426. 1528. 004.
- [10] Fetal Diagnosis and Treatment Committee of the American Pediatric Surgical Association. Fetal diagnosis and therapy: a reference handbook for pediatric surgeons[M]. 2nd Ed. New York: American Pediatric Surgical Association, 2019:27-30.
- [11] 赵体玉,郭月,李乔. 质量先期策划与控制计划在产时宫外处理中的应用[J]. 中华护理杂志, 2015, 50(10): 1212-1216. DOI: 10. 3761/j. issn. 0254-1769. 2015. 10. 012.
Zhao TY, Guo Y, Li Q. Application of advanced product quality and control planning for ex utero intrapartum treatment[J]. Chin J Nurs, 2015, 50(10): 1212-1216. DOI: 10. 3761/j. issn. 0254-1769. 2015. 10. 012.
- [12] 张志涛,刘彩霞,周阳子,等. 产时手术在治疗出生缺陷儿及改善其预后中的价值[J]. 中华妇产科杂志, 2010, 45(9): 652-657. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 0529-567x. 2010. 09. 004.
Zhang ZT, Liu CX, Zhou YZ, et al. Intrapartum operations for fetuses with birth defects and its outcomes[J]. Chin J Obstet Gynecol, 2010, 45(9): 652-657. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 0529-567x. 2010. 09. 004.
- [13] 郑里乐,许慧萍,彭牡丹. 产时子宫外胎儿手术的护理配合[J]. 临床小儿外科杂志, 2011, 10(2): 157-158. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671-6353. 2011. 02. 034.
Zheng LL, Xu HP, Peng MD. Nursing cooperations in extrauterine fetal surgery during labor[J]. J Clin Ped Sur, 2011, 10(2): 157-158. DOI: 10. 3969/j. issn. 1671-6353. 2011. 02. 034.
- [14] 李欢,王大佳,刘彩霞,等. 子宫外产时处理技术规范(2021 年更新版)[J]. 中国实用妇科与产科杂志, 2021, 37(4): 449-452. DOI: 10. 19538/j. fk2021040111.
Li H, Wang DJ, Liu CX, et al. Technical Specifications for ex utero intrapartum treatment (updated edition 2021)[J]. Chin J Pract Gynecol Obstet, 2021, 37(4): 449-452. DOI: 10. 19538/j. fk2021040111.

(收稿日期:2020-01-14)

本文引用格式: 赵杭燕, 诸纪华, 王金湖, 等. 胎儿巨大骶尾部畸胎瘤宫外产时处理 1 例[J]. 临床小儿外科杂志, 2022, 21(11): 1098-1100. DOI: 10. 3760/cma. j. cn101785-202201032-019.

Citing this article as: Zhao HY, Zhu JH, Wang JH, et al. A case report of fetal giant sacrococcygeal teratoma during exutero intrapartum treatment[J]. J Clin Ped Sur, 2022, 21(11): 1098-1100. DOI: 10. 3760/cma. j. cn101785-202201032-019.