

## ·专题·出生结构缺陷的早期干预·

# 先天性膈疝疝囊的产前识别及其对预后的影响



全文二维码

侯龙龙 林土连 何秋明 吕俊健 钟微 黄莉 刘鸿圣

广州市妇女儿童医疗中心新生儿外科,广东省儿童健康与疾病临床医学研究中心,广州 510623

通信作者:钟微,Email:zhongwei@gwcmc.org

**【摘要】目的** 评估胎儿磁共振(magnetic resonance, MR)产前识别先天性膈疝(congenital diaphragmatic hernia, CDH)疝囊的准确性以及疝囊对CDH预后的影响。**方法** 以2013年1月1日至2020年12月31日在广州市妇女儿童医疗中心行胎儿MR评估、且生后行手术干预的62例CDH患儿为研究对象,根据是否存在疝囊分为疝囊组( $n=26$ )和非疝囊组( $n=36$ ),收集并对比两组患儿产前评估、产时情况、临床特征及预后等情况。**结果** 62例CDH患儿中,共26例术中证实存在疝囊,其中18例通过胎儿MR发现疝囊且术中得到证实,MR产前识别CDH疝囊的灵敏度为69.2%(18/26)。两组患儿总肺容积实测值与预测值的比值(observed/expected total fetal lung volume, o/e TFLV)、性别构成、出生胎龄、出生体重、1分钟及5分钟Apgar评分、手术方式及术中使用补片情况、缺损大小、呼吸机辅助通气时间、住院时间、持续肺动脉高压(persistent pulmonary hypertension of newborn, PPHN)及体外膜肺氧合(extracorporeal membrane oxygenation, ECMO)使用率等比较,差异均无统计学意义( $P > 0.05$ )。疝囊组患儿具有更高的预测肺容积比(percentage of predicted lung volume, PPLV),差异有统计学意义( $P < 0.05$ )。疝囊组患儿缺损位于右侧及肝疝入的比例高于非疝囊组( $P < 0.05$ )。疝囊组患儿存活率为100%,非疝囊组患儿存活率为86.1%,差异具有统计学意义( $P < 0.05$ )。**结论** MR能够在产前较好识别CDH是否存在疝囊;有疝囊CDH患儿产前肺发育程度评估指标整体优于无疝囊CDH患儿,且出生后存活率更高。

**【关键词】** 疝, 横膈, 先天性/并发症; 产前诊断/方法; 婴儿, 新生; 预后

**基金项目:** 广东省自然科学基金(2020A1515010296)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202206003-006

## Prenatal identification of hernia sac in congenital diaphragmatic hernia and its effect on prognosis

Hou Longlong, Lin Tulian, He Qiuming, Lyu Junjian, Zhong Wei, Huang Li, Liu Hongsheng

Department of Neonatal Surgery, Municipal Women & Children's Medical Center, Guangdong Provincial Clinical Research Center for Children's Health, Guangzhou 510623, China

Corresponding author: Zhong Wei, Email: zhongwei@gwcmc.org

**[Abstract]** **Objective** To evaluate the accuracy identification of hernia sac in congenital diaphragmatic hernia (CDH) by fetal magnetic resonance and examine the prognostic effect of hernia sac on CDH. **Methods** From January 1, 2013 to December 31, 2020, 62 CDH neonates receiving fetal magnetic resonance (MR) and undergoing surgical intervention were selected as subjects. According to the presence or absence of hernia sac, they were divided into two groups of hernia sac ( $n=26$ ) and non-hernia sac ( $n=36$ ). Prenatal profiles, intrapartum status, clinical features and outcomes of CDH were compared between two groups. **Results** Hernia sac was detected in 18 infants during fetal period and the detection rate of fetal MR for hernia sac was 69.2%. No significant inter-group differences existed in o/e TFLV, gender, gestational age, birth weight, 1/5-min Apgar score, surgical approach, patch usage, defect size, days of ventilation, hospital stay or utilization rate ( $P > 0.05$ ). The hernia sac group had a higher PPLV ( $P < 0.05$ ). As compared with non-hernia sac group, there were more right-side CDH children and more cases of liver herniation in hernia sac group ( $P < 0.05$ ). The survival rate was 100% in hernia sac group and 86.1% in non-hernia sac group and the difference was statistically

significant ( $P < 0.05$ )。Conclusion MR can well identify the presence of a hernia sac in CDH during prenatal period. Hernia sac group has better prenatal assessment parameters with a higher postnatal survival.

**[Key words]** Hernias, Diaphragmatic, Congenital/CO; Prenatal Diagnosis/MT; Infant, Newborn; Prognosis

**Fund program:** Natural Science Foundation of Guangdong Province(2020A1515010296)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202206003-006

先天性膈疝 (congenital diaphragmatic hernia, CDH) 是一种严重的出生结构畸形, 其特征是胚胎发育时膈肌缺损伴腹部器官疝入胸腔。因此, CDH 患儿常伴有肺发育不良和肺动脉高压, 这也是导致 CDH 患儿死亡的主要原因。CDH 的总体病死率约 30%, 严重 CDH 的病死率达 50%~60%<sup>[1-2]</sup>。既往研究明确提出膈肌缺损大小和疝入胸腔是 CDH 预后不良的相关因素<sup>[3-4]</sup>。同时, 部分研究发现存在疝囊是 CDH 预后良好的相关因素<sup>[5-11]</sup>。然而, 关于如何在产前通过胎儿磁共振检查 (magnetic resonance, MR) 识别疝囊以及疝囊对预后的影响, 临床研究较少<sup>[9,12]</sup>。本研究旨在结合 CDH 患儿的 MR 特征及手术情况, 探讨 MR 对 CDH 疝囊识别的准确性, 分析疝囊对 CDH 患儿预后的影响, 为 CDH 的产前诊断及临床治疗提供借鉴。

## 材料与方法

### 一、临床资料

以 2013 年 1 月 1 日至 2020 年 12 月 31 日在广州市妇女儿童医疗中心接受产前诊断及治疗的 CDH 患儿为研究对象。入选标准: ①患儿母亲孕 28 周以后在本院行胎儿磁共振; ②患儿出生后在本院治疗并行手术干预。排除标准: ①患儿合并严重心脏结构畸形; ②患儿合并致病性染色体或基因疾病; ③病案记录不全。最终本研究纳入 62 例患儿, 其中男 37 例, 女 25 例; 早产儿 9 例, 足月儿 53 例; 出生中位胎龄  $38^{+5}$  周 ( $33 \sim 41^{+3}$  周), 出生中位体重 2 995 g ( $1\ 960 \sim 4\ 020$  g); 经阴道分娩 48 例, 剖宫产 14 例; 1 分钟 Apgar 评分为  $(8.23 \pm 0.71)$  分, 5 分钟 Apgar 评分为  $(8.82 \pm 0.71)$  分。根据是否存在疝囊分为疝囊组 ( $n = 26$ ) 和非疝囊组 ( $n = 36$ )。本研究经广州市妇女儿童医疗中心伦理委员会批准 (审批编号:穗妇儿科伦批字[2022]第 123A01 号)。

### 二、观察指标

从病历系统中提取入选患儿信息, 包括总肺容积实测值与预测值的比值 (observed/expected total fetal lung volume, o/e TFLV)、预测肺容积比 (per-

centage of predicted lung volume, PPLV)、分娩方式、性别、出生胎龄、出生体重、1 分钟及 5 分钟 Apgar 评分、膈肌缺损侧别、肝疝入情况、手术方式及术中使用补片率、缺损大小、新生儿持续肺动脉高压 (persistent pulmonary hypertension of newborn, PPHN) 发生率、体外膜肺氧合 (extracorporeal membrane oxygenation, ECMO) 使用率、呼吸机辅助通气时间、住院时间及存活率等。

### 三、相关定义

1. 胎儿 MR 对 CDH 疝囊的识别: 结合既往研究结果, 当胎儿 MR 存在以下征象之一可诊断 CDH 疝囊的存在: ①肺后方或疝内容物顶端看到半月样液面 (即肺半月征); ②疝内容物被包裹呈胶囊状 (即胶囊征); ③肺上方观察到囊状胸膜液的存在 (即胸水征); ④肺下方观察到囊状腹水的存在 (即腹水征)<sup>[2,12]</sup>。

2. PPHN: 是指由多种原因引起的新生儿出生后肺血管阻力持续增高, 肺动脉压超过体动脉压, 导致心房和 (或) 动脉导管出现右向左分流, 从而出现持续性低氧血症。诊断标准需同时符合以下 2 点: ①动脉导管前后的动脉血氧分压差为  $10 \sim 20$  mmHg ( $1\text{ mmHg} = 0.133\text{ kPa}$ ), 或右上肢经支动脉血氧饱和度高于下肢 5% 或以上; ②患儿出生后心脏超声提示肺动脉收缩压  $> 35$  mmHg 或超过体循环收缩压的  $2/3$ , 存在心房或动脉导管水平的右向左分流<sup>[13]</sup>。通常情况下, 根据心脏彩超结果, CDH 患儿可无明显的 PPHN; 出现 PPHN 时, 评估结果可分为轻度、中度及重度三个等级。

3. ECMO 应用指征: 根据 2017 年中华医学会儿科学分会新生儿学组发布的关于新生儿肺动脉高压治疗共识, 符合以下适应证之一并排除绝对禁忌证时, 可考虑使用 ECMO<sup>[13]</sup>。①在常频机械通气时氧合指数 (oxygenation index, OI)  $\geq 40$ , 在高频通气时  $OI \geq 50$ ; ②在最大呼吸支持下, 氧合和通气无改善: 动脉血氧分压  $< 40$  mmHg 超过 2 h; 在常频机械通气下气道峰压 (peak inspiratory pressure, PIP)  $> 28\text{ cmH}_2\text{O}$  ( $1\text{ cmH}_2\text{O} = 0.098\text{ kPa}$ ), 或在高频通气下

气道平均压 (mean airway pressure, MAP) > 15 cmH<sub>2</sub>O, 但动脉导管前动脉血氧饱和度 < 0.85; ③代谢性酸中毒, pH < 7.15, 血乳酸增高 ≥ 5 mmol/L, 应用液体复苏或正性肌力药物不能纠正低血压或循环衰竭, 尿量 < 0.5 mL · kg<sup>-1</sup> · h<sup>-1</sup> 持续 12 ~ 24 h; ④其他: 出生胎龄 > 34 周, 出生体重 > 2 kg; ⑤无法纠正的酸中毒和休克。ECMO 的绝对禁忌证: ①Ⅲ ~ Ⅳ度脑室内出血; ②严重、不可逆性脑损伤; ③致死性先天性畸形, 不可治疗的先天性心脏病, 严重、不可逆性肺、肝或肾脏疾病。

4. 缺损大小: 根据术中膈肌缺损修补情况, 将缺损大小分为 A、B、C 和 D 四个等级<sup>[3]</sup>。

#### 四、统计学处理

应用 SPSS 23.0 进行数据分析。正态分布的计量资料以  $\bar{x} \pm s$  表示, 组间比较采用独立样本 t 检验; 非正态分布的计量资料以  $M(Q_1, Q_3)$  表示, 组间比较采用秩和检验; 计数资料以例 (%) 表示, 组间比较采用  $\chi^2$  检验, 理论频数 < 5 时采用 Fisher 精确概率法。P < 0.05 为差异有统计学意义。

## 结 果

### 一、MR 产前识别 CDH 瘤囊的情况

本研究共纳入 62 例胎儿期行 MR 检查、且出生后行手术治疗的病例。26 例患儿术中证实存在瘤

囊, 其中 18 例在胎儿期通过 MR 识别出瘤囊, MRI 识别瘤囊的中位胎龄为 33<sup>+5</sup>周, 范围为 23<sup>+6</sup> ~ 39<sup>+5</sup>周; 8 例胎儿期未通过 MR 发现瘤囊, 但于术中明确存在瘤囊。本研究中, 胎儿 MR 对识别 CDH 瘤囊的灵敏度为 69.2%, 特异度为 100%。胎儿 MR 发现 CDH 瘤囊存在的典型征象有 4 种(图 1)。

### 二、两组 CDH 患儿产前评估及产时情况比较

瘤囊组和非瘤囊组患儿在 o/e TFLV、分娩方式、性别、出生胎龄、出生体重、生后 1 分钟及 5 分钟 Apgar 评分等方面比较, 差异均无统计学意义 (P > 0.05)。瘤囊组 PPLV 高于非瘤囊组, 差异具有统计学意义 (P < 0.05)。见表 1。

### 三、两组 CDH 患儿临床特征比较

62 例中, 肝疝入 14 例 (22.6%, 14/62); 缺损位于左侧 53 例, 位于右侧 9 例; 行胸腔镜手术 50 例, 其余 12 例为开放手术或胸腔镜中转开放手术; 术中明确为 A 级、B 级缺损共 46 例 (74.2%, 46/62), C 级、D 级缺损共 16 例 (25.8%, 16/62); 术中需要使用补片 31 例 (50%, 31/62)。瘤囊组肝疝入 11 例 (42.3%, 11/26), 非瘤囊组肝疝入 3 例 (9.38%, 3/36), 差异具有统计学意义 (P < 0.05); 瘤囊组膈疝位于右侧 8 例 (30.8%, 8/26), 非瘤囊组仅有 1 例 (3.13%, 1/36), 差异具有统计学意义 (P < 0.05)。两组患儿手术方式、术中是否使用补片以及膈肌缺损大小差异均无统计学意义 (P > 0.05)。见表 2。

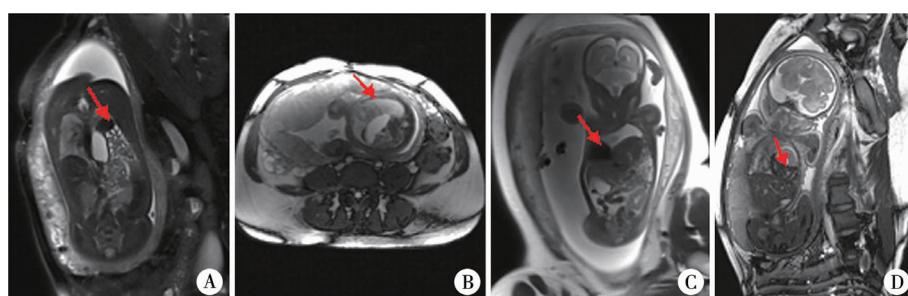


图 1 先天性膈疝患儿瘤囊的 4 种 MR 征象  
注 MR 指胎儿磁共振

Fig. 1 Four signs of hernia sac in CDH on MR

表 1 两组 CDH 患儿的产前评估及产时资料比较

Table 1 Comparison of prenatal evaluations and intrapartum status between two groups

分组	例数	o/e TFLV ( $\bar{x} \pm s$ , %)	PPLV ( $\bar{x} \pm s$ , %)	顺产 [例(%)]	男 [例(%)]	出生胎龄 ( $\bar{x} \pm s$ , 周)	出生体重 ( $\bar{x} \pm s$ , g)	1分钟 Apgar 评分 ( $\bar{x} \pm s$ , 分)	5分钟 Apgar 评分 ( $\bar{x} \pm s$ , 分)	
瘤囊组	26	53.13 ± 21.56	44.04 ± 18.55	17 (65.38)	17 (65.38)	38.76 ± 1.16	3 006.15 ± 302.27	8.46 ± 0.81	8.96 ± 0.66	
		46.64 ± 17.71	32.78 ± 12.27	21 (58.33)	20 (55.56)	38.18 ± 1.80	2 975.56 ± 431.73	8.28 ± 1.45	8.72 ± 0.91	
统计值		1.299	2.697	0.316	0.606	1.550	0.310	0.584	1.136	
P 值		0.199	0.010	0.574	0.436	0.126	0.757	0.561	0.260	

注 CDH 指先天性膈疝; TFLV 指总肺容积实测值与预测值的比值; PPLV 指预测肺容积比

表2 两组 CDH 患儿临床特征比较[例(%)]  
Table 2 Comparison of clinical features between two groups[ n(%) ]

分组	例数	肝疝入	右侧膈疝	胸腔镜手术	术中使用补片	缺损大小分级			
						A 级	B 级	C 级	D 级
疝囊组	26	11(42.31)	8(30.77)	22(84.62)	13(50.0)	4(15.38)	16(61.54)	5(19.23)	1(3.85)
非疝囊组	36	3(8.33)	1(2.78)	28(77.78)	18(50.0)	7(19.44)	19(52.78)	8(22.22)	2(5.56)
统计值		9.968	9.532	0.452	0.000			0.501	
P 值		0.002	0.002	0.501	1.000			0.919	

注 CDH 指先天性膈疝

#### 四、两组 CDH 患儿预后比较

62 例患儿中, 38 例(61.3%)未出现 PPHN, 7 例(11.3%)出现轻度 PPHN, 4 例(6.50%)出现中度 PPHN, 13 例(20.9%)出现重度 PPHN; 存活 57 例(91.9%, 57/62), 死亡 5 例(8.10%, 5/62)。疝囊组存活率为 100% (26/26), 非疝囊组存活率为 86.1% (31/36), 差异具有统计学意义( $P < 0.05$ )。对两组患儿 PPHN 发生率、呼吸机辅助通气时间、ECMO 使用率及住院时间进行比较, 差异均无统计学意义( $P > 0.05$ )。见表 3。

#### 讨 论

先天性膈疝是新生儿较常见的危急重症, 容易出现肺发育不良和肺动脉高压, 导致患儿死亡。随着医学影像学的发展, 越来越多的 CDH 病例得到了较好的产前诊断, 且产前评估指标对 CDH 患儿预后的影响是临床医师及患儿家属的关注重点。既往研究显示, 存在疝囊的胎儿 CDH 具有较理想的产前评估指标, 而这些 CDH 患儿在出生后也具有相对较好的预后<sup>[5-11]</sup>。目前, 对 CDH 是否存在疝囊的主要识别手段是胎儿 B 超及 MR。但关于产前如何对疝囊进行识别的研究不多, 国内尚缺少这类型的研究<sup>[9,12]</sup>。本研究通过回顾性分析, 探讨 MR 对 CDH 疝囊识别的准确性, 并分析疝囊对 CDH 患儿预后的影响, 给临床医师及患儿家属提供产前诊断及治疗帮助。结果显示, MR 能够在产前较好地识别疝囊,

而存在疝囊的 CDH 患儿具有较理想的产前评估指标及较高的存活率。

疝囊由胸膜和腹膜两层浆膜组成, 中间可见呈薄膜状的稀少肌肉组织和一些结缔组织, 多数研究认为, 其发生机制与胸腹膜裂孔发生闭合后肌肉未及时发育有关<sup>[14]</sup>。既往研究显示, 疝囊在 CDH 患儿中的发生率为 14%~39.3%<sup>[5-12]</sup>。Zamora 等<sup>[12]</sup>发现, 当胎儿 MR 存在肺半月征、胶囊征、胸水征及腹水征之中的任何一种征象时, 即可诊断 CDH 疝囊的存在。当 MR 发现肺半月征时, 预测疝囊发生的可能性为 94.4%; 存在胶囊征时, 预测疝囊发生的可能性为 96.2%; 存在胸水征时, 预测疝囊发生的可能性为 68.2%; 存在腹水征时, 预测疝囊发生的可能性为 75.0%; 当存在 2 种以上征象时, 预测疝囊发生的可能性达 99.5% 以上。Oliver 等<sup>[9]</sup>研究探讨了胎儿 B 超及 MR 对疝囊进行识别的可能性, 发现 B 超对疝囊的识别率为 45.7%, 而 MR 对疝囊的识别率仅 38.6%。本研究共纳入患儿 62 例, 其中 26 例(41.9%, 26/62) 存在疝囊, 比既往国外报道的比例略高, 和国内王伟鹏等<sup>[11]</sup> 报道的膈疝疝囊比例接近, 这可能与本研究排除了一些无法确定是否存在疝囊的病例有关。另外在本研究中, 18 例疝囊为产前发现, 8 例为手术中发现, 不存在产前发现疝囊而术中证实不存在的情况; MR 对疝囊的识别灵敏性为 69.2%, 特异性为 100%, 接近 Zamora 等<sup>[12]</sup> 学者的研究结果。

既往有四项研究显示, 疝囊组患儿具有更高的

表3 两组 CDH 患儿预后比较  
Table 3 Comparison of outcomes between two groups

分组	例数	存活 [ 例(%) ]	呼吸机通气时间 ( $\bar{x} \pm s, d$ )	住院时间 ( $\bar{x} \pm s, d$ )	PPHN[ 例(%) ]			
					无	轻度	中度	重度
疝囊组	26	26(100.0)	10.90 ± 12.48	28.65 ± 22.31	17(65.38)	3(11.54)	1(3.85)	5(19.23)
非疝囊组	36	31(86.11)	12.71 ± 29.66	27.58 ± 29.72	21(58.33)	4(11.11)	3(8.33)	8(22.22)
统计值		3.928	-0.293	0.162			0.660	
P 值		0.047	0.770	0.872			0.882	

注 CDH 指先天性膈疝; PPHN 指持续肺动脉高压

o/e TFLV,但至今尚未有研究报道疝囊与 PPLV 的相关性<sup>[5-6,9,12]</sup>。Shieh 等<sup>[15]</sup>、吕俊健等<sup>[16]</sup>学者的两项研究表明,更高的 PPLV 与 CDH 患儿的良好结局相关。在近 5 年探讨疝囊与产时情况的研究中,有四项研究探讨了 CDH 患儿出生体重、1 分钟及 5 分钟 Apgar 评分与疝囊的关系<sup>[6-8,11]</sup>。其中,Levesque 等<sup>[8]</sup>、Aydin 等<sup>[6]</sup>的研究显示,疝囊组患儿具有更高的出生体重及 5 分钟 Apgar 评分,而 1 分钟 Apgar 评分与非疝囊组无差异;Grizelj 等<sup>[7]</sup>则发现,疝囊组患儿 5 分钟 Apgar 评分更高,但出生体重、1 分钟 Apgar 评分与非疝囊组无差异;王伟鹏等<sup>[11]</sup>发现疝囊组患儿具有更高的出生体重以及出生后 1 分钟、5 分钟 Apgar 评分。所有研究均未发现疝囊组与非疝囊组患儿在分娩方式、性别、出生胎龄上存在差异。既往有研究显示,较高的出生体重以及 5 分钟 Apgar 评分与良好预后相关<sup>[17-18]</sup>。在我们的研究中,疝囊组患儿具有较高的 o/e TFLV,但与非疝囊组相比,差异无统计学意义;与非疝囊组比较,疝囊组患儿的 PPLV、存活率均更高,差异均有统计学意义。

既往一些研究显示,在疝囊组患儿中,膈疝位于右侧的情况更多见;一些研究表明,疝囊组和非疝囊组膈疝缺损侧的比例无差异<sup>[6,11]</sup>。王伟鹏等<sup>[11]</sup>研究发现疝囊组患儿肝疝入比例更高,其余研究提示疝囊组与非疝囊组肝疝入比例无差异<sup>[5,8,12]</sup>。Aydin 等<sup>[6]</sup>研究显示,疝囊组与非疝囊组患儿膈疝缺损大小差异有统计学意义;王伟鹏等<sup>[11]</sup>则发现,两组患儿手术方式及膈疝缺损大小均无差异;Levesque 等<sup>[8]</sup>发现两组患儿膈疝缺损大小无差异。有研究对术中使用补片进行分析,发现非疝囊组患儿需要使用补片的人数比例更高<sup>[5-6,9,11]</sup>。我们的研究与王伟鹏等<sup>[11]</sup>结论一致,疝囊组患儿的膈疝更多位于右侧、肝疝入比例更高,但两组间补片使用、手术方式(使用胸腔镜)及缺损大小无差异。之前有研究提示,肝疝入和右侧缺损会降低 CDH 患儿的存活率<sup>[4,19]</sup>。在我们的研究中,尽管疝囊组患儿肝疝入和右侧缺损的比例更高,但存活率未受影响,可能是因为疝囊的存在提高了这些患儿的存活率。

最后,我们对两组患儿的存活率进行了比较,发现疝囊组患儿存活率更高,与非疝囊组相比差异有统计学意义。不过,两组在 PPHN 发生率及严重程度、ECMO 使用率、呼吸机辅助通气时间及住院时间等方面比较,均无差异。与我们的结果类似,既往研究也发现疝囊组患儿的存活率更高<sup>[5-7,10-11]</sup>。但有两项研究发现两组患儿存活率无差异,这与我

们的研究结果正好相反<sup>[8,12]</sup>。不同于我们的结果,有两项研究发现非疝囊组患儿 PPHN 发生率更高、更严重<sup>[7,9]</sup>。而另外两项研究的结果和我们一样,两组 PPHN 的发生率并无差异<sup>[5,8]</sup>。有两项研究发现在 ECMO 使用上非疝囊组更多,这不同于我们的结果<sup>[6,12]</sup>。而 Oliver 等<sup>[9]</sup>的结果和我们一致,两组在 ECMO 的使用率上无统计学意义。在呼吸机通气和住院时间上,有四项研究均发现非疝囊组患儿使用呼吸机时间更长、住院时间更久<sup>[6,8-9,11]</sup>。但 Bouchghoul 等<sup>[5]</sup>并未发现两组患儿存在差异。本研究发现,存在疝囊的先天性膈疝患儿具有更理想的产前评估指标及更好的预后,与国内外类似研究结果基本一致。但本研究样本量较小,为回顾性分析,数据来源于单个医疗中心,存在一定的研究局限,后续有待于多中心、大样本临床研究持续探讨疝囊与先天性膈疝预后的相关性。

综上所述,胎儿 MR 可以在产前较好识别 CDH 疝囊,灵敏度为 69.2%,特异性为 100%。疝囊组患儿尽管右侧膈疝及肝疝入比例更高,但具有更理想的产前评估指标,出生后存活率也更高。因此,对于胎儿 CDH,建议到有条件的胎儿医学中心完善 MR,以明确是否存在疝囊,从而更精准地进行产前咨询及预后判断。

**利益冲突** 所有作者均声明不存在利益冲突

**作者贡献声明** 文献检索为侯龙龙、林土连,论文调查设计为侯龙龙、林土连、何秋明、钟微,数据收集与分析为侯龙龙、林土连、吕俊健、黄莉、刘鸿圣,论文结果撰写为侯龙龙,论文讨论分析为侯龙龙、何秋明、钟微

## 参 考 文 献

- [1] Jancelewicz T, Brindle ME, Guner YS, et al. Toward standardized management of congenital diaphragmatic hernia: an analysis of practice guidelines [J]. J Surg Res, 2019, 243:229-235. DOI: 10.1016/j.jss.2019.05.007.
- [2] 林土连,吕俊健,何秋明,等.胎儿膈疝不同程度分级的临床特征及预后[J].临床小儿外科杂志,2021,20(9):832-836. DOI: 10.12260/lcxewkzz.2021.09.006.  
Lin TL, Lyu JJ, He QM, et al. Association of fetal diaphragmatic hernia severity with prenatal parameters [J]. J Clin Ped Sur, 2021,20(9):832 - 836. DOI: 10.12260/lcxewkzz.2021.09.06.
- [3] Chock VY, Danzer E, Chung S, et al. In-Hospital morbidities for neonates with congenital diaphragmatic hernia: the impact of defect size and laterality [J]. J Pediatr, 2022, 240:94-101. e6. DOI: 10.1016/j.jpeds.2021.09.001.
- [4] 吕俊健,林土连,吴强,等.超声心动图对先天性膈疝患者接受体外膜肺氧合治疗的预测作用研究[J].临床小儿外科杂志,2021,20(9):814-818, 824. DOI: 10.12260/lcxewkzz.2021.09.003.

- Lyu JJ, Lin TL, Wu Q, et al. Prediction of extracorporeal membrane oxygenation in children with congenital diaphragmatic hernia by echocardiography [J]. J Clin Ped Sur, 2021, 20(9): 814-824. DOI: 10.12260/lcxewkzz. 2021.09.003.
- [5] Bouchghoul H, Marty O, Fouquet V, et al. Congenital diaphragmatic hernia has a better prognosis when associated with a hernia sac [J]. Prenat Diagn, 2018, 38(9): 638-644. DOI: 10.1002/pd. 5326.
- [6] Aydin E, Lim FY, Kingma P, et al. Congenital diaphragmatic hernia: the good, the bad, and the tough [J]. Pediatr Surg Int, 2019, 35(3): 303-313. DOI: 10.1007/s00383-019-04442-z.
- [7] Grizelj R, Bojanic K, Vuković J, et al. Hernia sac presence portends better survivability of isolated congenital diaphragmatic hernia with "Liver-Up" [J]. Am J Perinatol, 2017, 34(5): 515-519. DOI: 10.1055/s-0036-1593765.
- [8] Levesque M, Derraugh G, Schantz D, et al. The presence of a hernia sac in isolated congenital diaphragmatic hernia is associated with less disease severity: A retrospective cohort study [J]. J Pediatr Surg, 2019, 54(5): 899-902. DOI: 10.1016/j.jpedsurg. 2019.01.016.
- [9] Oliver ER, DeBari SE, Adams SE, et al. Congenital diaphragmatic hernia sacs: prenatal imaging and associated postnatal outcomes [J]. Pediatr Radiol, 2019, 49(5): 593-599. DOI: 10.1007/s00247-018-04334-9.
- [10] Jawaid W, Sampat K, Losty PD. Does the presence of a hernia sac improve survival in newborns with congenital diaphragmatic hernia? A United Kingdom Single-Center Experience [J]. Eur J Pediatr Surg, 2021, 31(3): 276-281. DOI: 10.1055/s-0040-1713131.
- [11] 王伟鹏,潘伟华,陈杰,等.疝囊对先天性膈疝患儿临床结局的影响[J].中华小儿外科杂志,2019,40(3):212-215. DOI: 10.3760/cma.j. issn.0253-3006.2019.03.005.
- Wang WP, Pan WH, Chen J, et al. Effect of hernia sac on outcomes in infants with congenital diaphragmatic hernia [J]. Chin J Pediatr Surg, 2019, 40(3): 212-215. DOI: 10.3760/cma.j. issn. 0253-3006. 2019.03.005.
- [12] Zamora IJ, Mehollin-Ray AR, Sheikh F, et al. Predictive Value of MRI Findings for the Identification of a Hernia Sac in Fetuses With Congenital Diaphragmatic Hernia [J]. AJR Am J Roentgenol, 2015, 205(5): 1121-1125. DOI: 10.2214/AJR. 15. 14476.
- [13] 杜立中,薛辛东,母得志,等.新生儿肺动脉高压诊治专家共识[J].中华儿科杂志,2017,55(3):163-168. DOI: 10.3760/cma.j. issn.0578-1310.2017.03.002.
- Du LZ, Xue XD, Mu DZ, et al. Expert Consensus on Diagnosing and Treating Neonatal Pulmonary Hypertension [J]. Chinese Journal of Pediatrics, 2017, 55(3): 163-168. DOI: 10.3760/cma.j. issn. 0578-1310. 2017.03.002.
- [14] Kardon G, Ackerman KG, McCulley DJ, et al. Congenital diaphragmatic hernias: from genes to mechanisms to therapies [J]. Dis Model Mech, 2017, 10(8): 955-970. DOI: 10.1242/dmm. 028365.
- [15] Shieh HF, Barnewolt CE, Wilson JM, et al. Percent predicted lung volume changes on fetal magnetic resonance imaging throughout gestation in congenital diaphragmatic hernia [J]. J Pediatr Surg, 2017, 52(6): 933-937. DOI: 10.1016/j.jpedsurg. 2017.03.013.
- [16] 吕俊健,何秋明,钟微,等.胎儿期MRI测量预测肺容积比对左侧先天性膈疝患者预后的诊断价值[J].中华围产医学杂志,2018,21(11):745-749. DOI: 10.3760/cma.j. issn. 1007-9408. 2018.11.005.
- Lyu JJ, He QM, Zhong W, et al. Diagnostic value of fetal MRI measurement of lung volume ratio in predicting the prognosis of left congenital diaphragmatic hernia [J]. Chinese Journal of Perinatal Medicine, 2018, 21(11): 745-749. DOI: 10.3760/cma.j. issn. 1007-9408. 2018.11.005.
- [17] Bent DP, Nelson J, Kent DM, et al. Population-based validation of a clinical prediction model for congenital diaphragmatic hernias [J]. J Pediatr, 2018, 201: 160-165.e1. DOI: 10.1016/j.jpeds. 2018.05.027.
- [18] Delaplain PT, Zhang L, Chen Y, et al. Cannulating the contraindicated: effect of low birth weight on mortality in neonates with congenital diaphragmatic hernia on extracorporeal membrane oxygenation [J]. J Pediatr Surg, 2017, 52(12): 2018-2025. DOI: 10.1016/j.jpedsurg. 2017.08.37.
- [19] Brandt JB, Werther T, Groth E, et al. Risk factors for mortality in infants with congenital diaphragmatic hernia: a single center experience [J]. Wien Klin Wochenschr, 2021, 133(13-14): 674-679. DOI: 10.1007/s00508-021-01843-w.

(收稿日期:2022-06-02)

**本文引用格式:**侯龙龙,林士连,何秋明,等.先天性膈疝疝囊的产前识别及其对预后的影响[J].临床小儿外科杂志,2022,21(9):827-832. DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202206003-006.

**Citing this article as:** Hou LL, Lin TL, He QM, et al. Prenatal identification of hernia sac in congenital diaphragmatic hernia and its effect on prognosis [J]. J Clin Ped Sur, 2022, 21(9): 827-832. DOI: 10.3760/cma.j. cn101785-202206003-006.

## 病例删失和失访

我们看到一些医生会把删失和失访两个概念搞混,实际上这两个概念完全不同。举个简单的例子,医生收集了200例肿瘤术后患者,观察3年,其中30例失访,即失访率为15%;剩下的170例患者中,共有120例患者死亡,50例患者仍然存活,此时仍存活的患者(50例)及之前失访的患者(30例)之和即为删失例数,删失率为40%。生存分析中的删失数据处理本身就是一个相对复杂的统计学问题,通常使用Cox(比例风险)回归模型进行分析。