

不同年龄段儿童终丝脂肪浸润/脂肪瘤型脊髓拴系综合征临床特征与手术疗效分析

徐琛 张毅 王敏 赵瑞 施伟 李昊

【摘要】 目的 评估终丝离断术对不同年龄段终丝脂肪浸润/脂肪瘤型脊髓拴系综合征患儿的治疗结局,探索此种类型脊髓拴系综合征的自然病程和治疗策略。**方法与结果** 回顾分析2017年1月至2022年5月在复旦大学附属儿科医院行终丝离断术治疗的77例终丝脂肪浸润/脂肪瘤型脊髓拴系综合征患儿的临床资料,不同组别[幼儿组(<3岁)、学龄前组(3~6岁)和学龄组(>6岁)]患儿入院原因(Fisher确切概率法: $P=0.001$)、骶尾部皮肤异常者比例($\chi^2=7.841, P=0.021$)、存在临床症状比例($\chi^2=13.618, P=0.001$)及圆锥末端位置(Fisher确切概率法: $P=0.039$)差异具有统计学意义。与幼儿组相比,学龄组被动检查比例较低(Fisher确切概率法: $P=0.021$)、有症状就医者比例较高(校正 $\chi^2=12.738, P=0.000$)、骶尾部皮肤异常者比例较低($\chi^2=6.481, P=0.011$)、存在临床症状者比例较高($\chi^2=13.558, P=0.000$)、圆锥末端位置位于L₂及以上者比例较低(Fisher确切概率法: $P=0.024$);学龄组存在临床症状者比例亦高于学龄前组(Fisher确切概率法: $P=0.034$)。术后终丝直径为(2.17±0.70)mm,较术前平均增粗(0.46±0.28)mm,其中26例(81.25%,26/32)术后终丝仍继续增粗。术前9例合并脊髓空洞症2例消失、6例好转、1例持续加重,术后MRI提示脊髓再拴系2例。共随访1.90(1.11,3.10)年,41例术前无症状患儿无新发神经功能缺损症状;35例有症状者幼儿组13例、学龄前组9例、学龄组13例,3组神经功能结局差异无统计学意义(Fisher确切概率法: $P=0.246$);失访1例。**结论** 不同年龄段终丝脂肪浸润/脂肪瘤型脊髓拴系综合征患儿的临床特征不同,年龄越大出现临床症状的风险越高;手术后仍有可能出现神经功能缺损症状。终丝离断术风险低、并发症少,预防性终丝离断术可降低神经功能缺损发生率。

【关键词】 神经管缺损; 马尾; 脊髓切断术; 儿童

Clinical characteristics and outcome of surgical treatment in children with tethered fatty filum or lipoma of filum at different ages

XU Chen, ZHANG Yi, WANG Min, ZHAO Rui, SHI Wei, LI Hao

Department of Neurosurgery, Children's Hospital of Fudan University; National Children's Medical Center, Shanghai 201102, China

Corresponding author: LI Hao (Email: li_hao@fudan.edu.cn)

【Abstract】 Objective To evaluate the outcome of surgical treatment of tethered cord syndrome (TCS) in children with fatty filum or lipoma of filum at different ages and to explore the natural course and therapeutic strategy of this type of TCS. **Methods and Results** Total 77 TCS patients with fatty filum or lipoma of filum who underwent surgical division of the filum terminale between January 2017 and May 2022 in Children's Hospital of Fudan University were screened for eligibility. According to age, they were divided into young children group (<3 years), preschool group (3-6 years) and school-age group (>6 years). The reasons for admission (Fisher's exact probability: $P=0.001$), sacrococcygeal skin abnormalities ($\chi^2=7.841, P=0.021$), the proportion of children with clinical symptoms ($\chi^2=13.618, P=0.001$), and the position of conus medullaris (Fisher's exact probability: $P=0.039$) in the 3 groups were statistically significant. Compared with the young children group, the school-age group had a lower proportion of passive examination (Fisher's exact probability: $P=0.021$), a higher proportion of patients seeking medical

doi:10.3969/j.issn.1672-6731.2023.05.004

基金项目:国家自然科学基金青年科学基金资助项目(项目编号:82101810)

作者单位:201102 上海,国家儿童医学中心 复旦大学附属儿科医院神经外科

通讯作者:李昊,Email:li_hao@fudan.edu.cn

attention because of symptoms (adjusted $\chi^2 = 12.738$, $P = 0.000$), a lower proportion of sacrococcygeal skin abnormalities ($\chi^2 = 6.481$, $P = 0.011$), and a higher proportion of patients with clinical symptoms ($\chi^2 = 13.558$, $P = 0.000$), and the proportion of conus medullaris located at or above L₂ was lower (Fisher's exact probability: $P = 0.024$). The proportion of patients with clinical symptoms in the school-age group was also higher than that in the preschool group (Fisher's exact probability: $P = 0.034$). The average diameter of the filum terminale after surgery was (2.17 ± 0.70) mm, which increased by (0.46 ± 0.28) mm compared with that before operation, and 26 cases (81.25%, 26/32) of the filum terminale continued to increase in diameter. Among the 9 cases with preoperative syringomyelia, 2 cases disappeared, 6 cases improved, and one case continued to worsen. Postoperative MRI showed 2 cases had spinal cord retethering. During 1.90 (1.11, 3.10) years of follow-up, no new clinical symptoms were found in asymptomatic patients and 35 symptomatic children had 13 cases in the young children group, 9 cases in the preschool group, and 13 cases in the school-age group. There was no significant difference in functional outcome among the 3 groups (Fisher's exact probability: $P = 0.246$). One patient was lost to follow-up. **Conclusions** The clinical features of TCS with fatty filum or lipoma of filum are different. The older of the children, the higher of the proportion of clinical symptoms, more than half of the patients still have neurological abnormalities after surgical treatment. Division of the filum terminale is a low-risk procedure with few complications, and preventive surgery may reduce neurological damage.

【Key words】 Neural tube defects; Cauda equina; Cordotomy; Child

This study was supported by the National Natural Science Foundation of China for Young Scientists (No. 82101810).

Conflicts of interest: none declared

脊髓拴系综合征(TCS)是由于脊髓圆锥受到各种病理因素的牵拉,导致脊髓末端血液循环障碍而产生的一系列运动和感觉神经元进行性功能障综合征。MRI为首选诊断方法,典型分型包括孤立性低圆锥、终丝脂肪浸润/脂肪瘤、腰骶部脂肪瘤、脂肪脊髓脊膜膨出、伴尾部发育不全型低圆锥和脊髓空洞症、脊髓纵裂、脊髓脊膜膨出、术后再粘连和继发于其他手术的脊髓拴系^[1]。终丝脂肪浸润/脂肪瘤年发病率约为12/10万,但接受终丝离断术的儿童患者仅占15%^[2],主要与此类患儿发病隐匿,症状轻微甚至无症状,家长大多选择随访观察有关;目前外科手术治疗主要针对存在下肢运动感觉障碍、大小便障碍等神经系统症状或影像学检查伴脊髓空洞症的患儿。关于终丝脂肪浸润/脂肪瘤手术适应证的选择,至今尚无定论^[3-4],部分学者认为,神经损伤为不可逆性损伤,应尽早施行预防性终丝离断术,避免发生脊神经损伤^[5-6];但也有研究发现,即使发生终丝脂肪浸润性改变,在较长时间(3年)内也不会引起神经系统损伤^[7],且术后5%的复发率^[8]提示预防性手术同样存在诱发并发症的风险。为了使更多的终丝脂肪浸润/脂肪瘤患儿能够获得较好的生活质量和预后,本研究拟对复旦大学附属儿科医院近5年收治患儿的临床资料进行回顾分析,通过评估该亚型患儿的临床特征与预后特点,了解终

丝脂肪化的自然进程,探索预防性手术的可行性和最佳手术时机。

对象与方法

一、研究对象

1. 纳入标准 (1) 脊椎MRI检查明确提示为终丝脂肪浸润/脂肪瘤型脊髓拴系综合征;椎管内病灶呈点状或条状异常信号, T₁WI椎管内病灶呈点状或条状高信号, T₂WI可见伴脂肪沉积的终丝和脑脊液均呈高信号, 抑脂T₂WI椎管内病灶呈条状低信号; 伴或不伴脊髓圆锥低位(低于L₂椎体下缘)、异常终丝粗大(最大截面直径>2 mm)。(2) 年龄0~18岁。(3) 初次行终丝离断术。(4) 患儿家属对手术过程和可能引起的手术并发症等知情, 并签署知情同意书。(5) 本研究经复旦大学附属儿科医院道德伦理委员会审核批准[复儿伦审(2022)273号]。

2. 排除标准 (1) 继发性脊髓拴系综合征或者隐匿性脊髓拴系综合征。(2) 皮肤窦道感染深入椎管。(3) 外院手术之后转入我院再次手术。(4) 终丝离断术同时涉及其他椎管内操作如马尾神经粘连松解等。

3. 一般资料 选择2017年1月至2022年5月在我院神经外科住院治疗的先天性终丝脂肪浸润/脂肪瘤型脊髓拴系综合征患儿共77例, 男性44例, 女

性 33 例; 年龄 0.35 ~ 10.80 岁, 中位年龄 2.27 (0.90, 5.26) 岁; 术前体重 7.15 ~ 45.50 kg, 中位体重 12.50 (9.50, 18.75) kg。入院原因为主动检查(腰骶部皮肤异常) 24 例, 被动检查 32 例, 因大小便障碍、下肢功能异常、伴或不伴腰骶部皮肤异常等症状就医者 21 例; 病程 0.17 ~ 96 个月, 中位病程 7 (4, 12) 个月; 其他系统手术史者 25 例; 骶尾部皮肤异常者 44 例; 存在临床症状者 36 例, 包括排尿异常 (17 例次)、排便异常 (20 例次)、下肢运动感觉异常 (8 例次)。腰骶椎 MRI 检查显示圆锥末端分别位于 T₁₂ (1 例)、L₁ (28 例)、L₂ (34 例)、L₃ (10 例)、L₄ (1 例)、S₃ (1 例)、位置不明 (2 例); 存在脊髓空洞症 9 例; 骶尾椎发育不全、骶尾椎分节不良、半椎体畸形、隐性脊柱裂、骶管囊肿等其他异常 28 例; 术前终丝直径为 1.10 ~ 3.60 mm, 平均 (2.17 ± 0.70) mm。术前泌尿系统超声显示膀胱毛糙 9 例, 存在残余尿者 20 例, 残余尿量 0 ~ 168 ml、中位值为 0.00 (0.00, 24.75) ml。根据患儿年龄, 分为幼儿组 (< 3 岁, 44 例)、学龄前组 (3 ~ 6 岁, 18 例) 和学龄组 (> 6 岁, 15 例)。3 组间入院原因 ($P = 0.001$)、骶尾部皮肤异常者比例 ($P = 0.021$)、存在临床症状者比例 ($P = 0.001$)、圆锥末端位置 ($P = 0.039$) 比较, 差异具有统计学意义 (表 1)。与幼儿组相比, 学龄组被动检查比例较低 (Fisher 确切概率法: $P = 0.021$)、有症状就医者比例较高 (校正 $\chi^2 = 12.738$, $P = 0.000$), 而且骶尾部皮肤异常者比例较低 ($P = 0.011$)、存在临床症状者比例高 ($P = 0.000$)、圆锥末端位置位于 L₂ 及以上者比例低 ($P = 0.024$); 此外, 学龄组存在临床症状者比例高于学龄前组 ($P = 0.034$, 表 2)。

二、研究方法

1. 终丝离断术 患儿全身麻醉后俯卧位, 取脊柱后正中纵行切口约 2.50 cm, 根据术前 MRI 定位, 经脊髓圆锥下方切开椎板或经椎间隙显露硬脊膜, 显微镜下切开硬脊膜, 辨识脂肪浸润的终丝、双极电凝; 离断并切取部分远端终丝, 水密缝合硬脊膜, 可吸收缝合线缝合腰背部筋膜与棘上韧带, 重建脊椎后板, 逐层缝合伤口。对于存在骶尾部皮损的患儿, 另取腰骶部皮肤凹陷处作“梭形”切口, 完整切除皮下凹陷组织、逐层缝合伤口。术后保持俯卧位 48 h 后改为侧卧位, 以预防脑脊液漏。

2. 评价指标 (1) 手术及相关评价指标: 手术方式、椎体入路、手术时间、住院时间、手术并发症 (术后 1 个月内出现手术切口感染、脑脊液漏、泌尿系统

感染或原因不明发热), 记录术后 1 年内 MRI 所见 [终丝直径、终丝再拴系 (复发) 和脊髓空洞症恢复情况] 以及 B 超所示残余尿量。(2) 随访观察指标: 术前无症状患儿主要观察有无新发神经功能缺损; 术前存在临床症状的患儿, 以医师或家长主观评价临床症状完全消失为治愈, 改善为好转, 无改善或加重为未愈。

3. 统计分析方法 使用 SPSS 20.0 统计软件进行数据处理与分析。计数资料以相对数构成比 (%) 或率 (%) 表示, 采用 χ^2 检验或 Fisher 确切概率法。正态性检验采用 Q-Q 图和 Shapiro-Wilk 法, 呈正态分布的计量资料采用均数 ± 标准差 ($\bar{x} \pm s$) 表示, 3 组间比较采用单因素方差分析; 呈非正态分布的计量资料以中位数和四分位数间距 [$M(P_{25}, P_{75})$] 表示, 3 组间比较采用 Kruskal-Wallis (H) 检验。以 $P \leq 0.05$ 为差异具有统计学意义。

结 果

本组 77 例患儿均接受终丝离断术, 其中, 单纯终丝离断术 65 例、终丝离断术 + 骶尾部皮损切除术 12 例。手术记录中有明确锥体入路节段者共 51 例, 分别为 L₂ (5 例)、L₃ (9 例)、L₄ (13 例)、L₅ (21 例) 和 S₁ (3 例) 段; 手术时间 35 ~ 180 min, 平均 (76.57 ± 24.29) min; 住院时间 4 ~ 32 d, 中位值 10.81 (8.00, 12.00) d。术后短期并发症包括脑脊液漏 (1 例)、手术切口感染 (2 例)、泌尿系统感染 (5 例) 或不明原因发热 (2 例)。不同年龄组手术方式、锥体入路、手术时间、住院时间和并发症发生率差异无统计学意义 (均 $P > 0.05$, 表 3)。

对终丝可测量的 32 例患儿进行观察发现, 术后终丝直径为 1.10 ~ 4.10 mm, 平均 (2.17 ± 0.70) mm, 与术前相比, 平均增粗 (0.46 ± 0.28) mm; 有 26 例 (81.25%, 26/32) 患儿术后终丝仍继续增粗 (图 1)。术前合并脊髓空洞症的 9 例患儿 2 例空洞消失、6 例好转、1 例持续加重, 后者术后第 2 年于外院再次手术。术前泌尿系统超声检查显示残余尿量为 0.00 (0.00, 24.75) ml 的 20 例患儿, 术后 15 例仍存在残余尿, 残余尿量 0 ~ 95 ml、中位值为 36 (13, 55) ml, 其中 2 例残余尿量逐渐减少、8 例持续增多、5 例手术前后无变化。术后 MRI 提示脊髓再拴系 2 例, 1 例无症状、1 例因脊髓空洞症加重于外院再次手术。

本组患儿共随访 3 个月至 5 年, 中位随访时间为 1.90 (1.11, 3.10) 年, 41 例术前无临床症状患儿术

表 1 不同年龄组患儿术前临床资料的比较

Table 1. Comparison of preoperative baseline data in children of different age groups

观察指标	幼儿组(n=44)	学龄前组(n=18)	学龄组(n=15)	χ^2 或F值	P值
性别[例(%)]				1.011	0.603
男性	27(61.36)	10(10/18)	7(7/15)		
女性	17(38.64)	8(8/18)	8(8/15)		
入院原因[例(%)]				—	0.001
主动检查	11(25.00)	8(8/18)	5(5/15)		
被动检查	26(59.09)	5(5/18)	1(1/15)		
有症状就医	7(15.91)	5(5/18)	9(9/15)		
病程[M(P_{25} , P_{75}),月]	7.00(5.25, 10.00)	8.00(5.25, 37.50)	4.50(0.66, 12.00)	4.742	0.093
其他系统手术史[例(%)]	12(27.27)	9(9/18)	4(4/15)	3.156	0.227
骶尾部皮肤异常[例(%)]	31(70.45)	8(8/18)	5(5/15)	7.841	0.021
存在临床症状[例(%)]	14(31.82)	9(9/18)	13(13/15)	13.618	0.001
脊髓空洞症[例(%)]	7(15.91)	1(1/18)	1(1/15)	—	0.554
MRI其他异常[例(%)]	17(38.64)	6(6/18)	5(5/15)	0.229	0.900
术前终丝直径($\bar{x} \pm s$, mm)	2.12 \pm 0.61	1.78 \pm 0.83	2.83 \pm 1.00	2.394	0.107
膀胱毛糙[例(%)]	3(6.82)	5(5/18)	1(1/15)	—	0.069
存在残余尿	12	6	2		
残余尿量[M(P_{25} , P_{75}), ml]	0.00(0.00, 32.00)	12.50(0.00, 27.75)	0.00(0.00, 20.50)	1.007	0.604
圆锥末端位置[例(%)]	42	18	15	—	0.039
L ₂ 及以上	39(92.86)	14(14/18)	10(10/15)		
L ₂ 以下	3(7.14)	4(4/18)	5(5/15)		

—, Fisher's exact probability, Fisher确切概率法。One-way ANOVA test for comparison of preoperative diameter of terminale filum, Kruskal-Wallis (H) test for comparison of duration and postvoid residual urine volume, and χ^2 test for comparison of others, 术前终丝直径的比较采用单因素方差分析, 病程和残余尿量的比较采用 Kruskal-Wallis(H)检验, 其余指标的比较采用 χ^2 检验

表 2 不同年龄组患儿术前临床资料的两两比较

Table 2. Pairwise comparison of clinical data in children of different age groups

组间两两比	入院原因		骶尾部皮肤异常		存在临床症状		圆锥末端位置	
	统计量值	P值	χ^2 值	P值	χ^2 值	P值	统计量值	P值
幼儿组: 学龄前组	—	0.079	3.703	0.054	1.810	0.179	—	0.182
幼儿组: 学龄组	—	0.000	6.481	0.011	13.558	0.000	—	0.024
学龄前组: 学龄组	—	0.157	—	0.722	—	0.034	—	0.697

—, Fisher's exact probability, Fisher确切概率法

后均未见新发神经功能缺损症状; 35例术前存在临床症状的患儿中, 幼儿组 13例、学龄前组 9例、学龄组 13例, 3组神经功能结局差异无统计学意义($P=0.246$, 表 4); 余 1例失访, 为术前存在排便异常。术前存在排便异常的 17例患儿治愈 4例、好转 12例、未愈 1例; 存在排便异常的 19例患儿治愈 6例、好转 8例、未愈 5例; 存在下肢运动感觉异常的 8例患儿治愈 4例、好转 4例。

讨 论

对于影像学明确为终丝脂肪浸润/脂肪瘤型脊

髓拴系综合征且存在神经功能缺损症状的患儿, 通过终丝离断术解除拴系已成为临床共识; 但对于无症状患儿是否应该进行预防性手术、何时手术为宜仍存有争议。目前, 对于影像学显示存在脊髓拴系但无临床症状的患儿, 对其神经功能缺损发生率和病情进展速度等情况均未取得明确的临床证据。有研究显示, 每年有 3%~4% 无症状患儿在随访期间出现神经功能缺损症状^[9-10], 29% 未接受手术治疗的患儿可于 5.9年内出现症状^[11], 但是手术治疗组与保守治疗组神经功能缺损发生率并无明显差异^[12]。王贤书等^[13]对手术(终丝离断术, 60例)和

表 3 不同年龄组患儿手术及相关并发症发生率的比较

Table 3. Comparison of surgical treatment and complications in children of different age groups

观察指标	幼儿组(n=44)	学龄前组(n=18)	学龄组(n=15)	F 或 χ^2 值	P 值
手术方式[例(%)]				—	0.628
终丝离断术	36(81.82)	15(15/18)	14(14/15)		
终丝离断术+皮损切除术	8(18.18)	3(3/18)	1(1/15)		
椎体入路[例(%)]	35	10	6	—	0.972
L ₂	5(14.29)	0(0/10)	0(0/6)		
L ₃	6(17.14)	2(2/10)	1(1/6)		
L ₄	8(22.86)	3(3/10)	2(2/6)		
L ₅	14(40.00)	4(4/10)	3(3/6)		
S ₁	2(5.71)	1(1/10)	0(0/6)		
手术时间($\bar{x} \pm s$, min)	77.02 ± 23.72	73.11 ± 30.62	79.40 ± 17.61	0.287	0.752
住院时间[M(P ₂₅ , P ₇₅), d]	10.00(8.00, 12.00)	9.50(7.75, 14.00)	10.00(8.00, 13.00)	0.403	0.817
术后并发症[例(%)]	6(13.64)	2(2/18)	2(2/15)	—	1.000

—, Fisher's exact probability, Fisher 确切概率法。One-way ANOVA test for comparison of operation time, and Kruskal-Wallis (H) test for comparison of length of stay, 手术时间的比较采用单因素方差分析, 住院时间的比较采用 Kruskal-Wallis(H) 检验

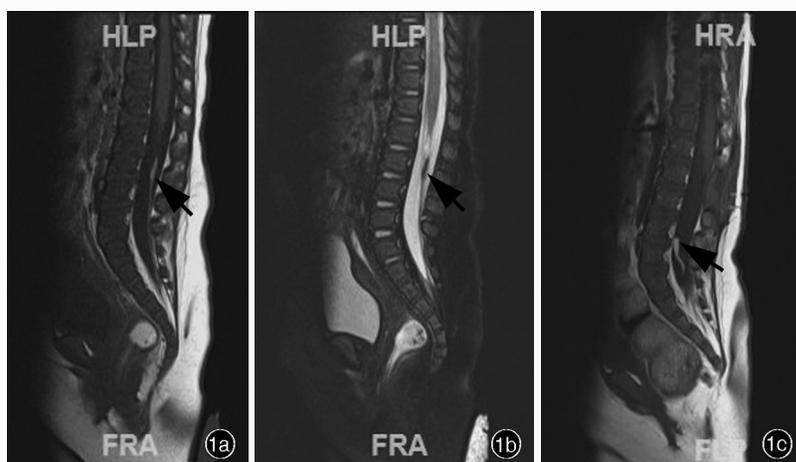


图 1 女性患儿, 6 月龄。临床诊断为终丝脂肪浸润, 终丝离断术前后骶尾椎 MRI 检查所见 1a 术前矢状位 T₁WI 显示终丝呈条状高信号(箭头所示) 1b 术前矢状位抑脂 T₂WI 显示终丝呈条状低信号(箭头所示) 1c 术后 3 个月矢状位 T₁WI 显示离断的终丝呈条状高信号, 对比可见终丝断端显著增粗(箭头所示)

Figure 1 Imaging findings of a 6-month-old girl with tethered fatty filum. Before surgery, sagittal T₁WI showed strips of hyperintensity in filum terminale (arrow indicates, Panel 1a). Sagittal fat suppression T₂WI showed strips of hypointensity in filum terminale (arrow indicates, Panel 1b). Three months after surgery, sagittal T₁WI showed strips of hyperintensity in filum terminale, and the comparison showed significant thickening of the severed filum terminale (arrow indicates, Panel 1c).

非手术(60例)脊髓拴系综合征患儿进行对比研究, 根据手术组患儿术后不同随访期新发神经功能缺损的出现时间点, 推测 3 和 6 岁可能是脊髓拴系综合征显著进展的关键期。在本研究中, 学龄组患儿(13/15)有临床症状者比例高于幼儿组(14/44), 但圆锥位于 L₂ 及以上者(13/15)低于幼儿组(39/42), 提示年龄越大、圆锥低位比例越高, 故而引起临床症状的比例也相应增加, 快速的生长发育会使牵拉的脊髓圆锥非弹性伸展, 逐渐导致患儿下肢运动感觉异常以及排便、排尿障碍。

研究表明, 终丝离断术可以减轻脊髓拴系对脊髓的牵拉, 从而防止不可逆性神经损伤的进一步发展^[14], 有 80%~90% 患儿术后神经功能缺损症状趋于稳定, 无加重或恶化表现^[1,15]。本研究有 85.71%

(30/35, 失访 1 例) 患儿术前存在神经功能缺损症状, 经手术治疗后症状改善, 但治愈率较低, 仅为 25.71%(9/35), 好转率和未愈率分别为 57.14%(20/35) 和 17.14%(6/35)。术前存在排尿异常的 17 例患儿治愈 4 例、好转 12 例、未愈 1 例; 存在排便异常的 19 例患儿中治愈 6 例、好转 8 例、未愈 5 例; 存在下肢运动感觉异常的 8 例患儿治愈 4 例、好转 4 例。提示大部分患儿在终丝离断术后仍不能免受神经功能缺损症状的影响。对于无症状患儿是否有必要接受预防性手术, 除需评估手术对患儿远期神经功能的影响, 更为值得关注的是手术安全性。根据流行病学调查, 终丝离断术鲜有并发症发生, 其常见并发症主要包括手术切口感染、神经损伤或脑脊液漏等^[5,16]。Bhimani 等^[16] 共报告 3682 例脊髓拴系综合

表 4 不同年龄组患儿术后神经功能结局比较 [例 (%)] *
Table 4. Comparison of neurological function after surgery in patients of different age groups [case (%)] *

组别	例数	治愈	好转	未愈
幼儿组	13	2(2/13)	7(7/13)	4(4/13)
学龄前组	9	3(3/ 9)	4(4/ 9)	2(2/ 9)
学龄组	13	4(4/13)	9(9/13)	0(0/13)

*Fisher's exact probability: $P = 0.246$, Fisher 确切概率法: $P = 0.246$

征患儿终丝离断术疗效,手术切口感染率仅 5%;在 Edström 等^[5]报告的 95 例患儿中,仅 1 例发生脑脊液漏,经保守治疗症状好转;另一项针对手术疗效的评价研究显示,10 例终丝离断术患儿中 6 例于术后出现渐进性神经功能缺损,考虑与再拴系有关^[17]。本组 77 例患儿术后无一例发生神经损伤、出血等并发症,术后短期仅 1 例发生脑脊液漏、2 例手术切口感染、5 例泌尿系感染和 2 例不明原因发热,随访期间 2 例出现脊髓再拴系。本组患儿术后感染率与文献报道基本一致,且无中枢神经系统感染病例,经局部和口服抗生素治疗后感染症状得到控制;脑脊液漏患儿的皮肤伤口采取加固缝合并强制俯卧位后自愈;再拴系患儿中 1 例临床观察无症状、1 例因中央管扩张加重于外院再次手术。

终丝离断术后通过 MRI 复查可见仍有 80% 的终丝残余继续增厚,尤其是头端^[18],本研究也发现近 81.25% (26/32) 患儿切断终丝后,断端仍在不断增粗。终丝直径增加与终丝内脂肪组织、血管组织和神经分支等成分有关,其中神经分支和脂肪组织分别与异常的尿动力学和越低的圆锥低位有关^[19];脂肪组织数量可改变终丝的发育特性,由于弹性受限,较易发生再拴系^[20],推测终丝脂肪浸润/脂肪瘤在儿童患者群体中可能代表一个进展过程。如果放任终丝脂肪化,圆锥将被拉低,增高的终丝张力也会引起相应的临床症状。一般认为,5 岁以下患儿很少出现泌尿系统、消化系统、神经系统或骨关节症状与体征,至少 3~6 年后无症状患儿才有可能显露上述系统异常^[21];本组有 4 例患儿连续随访两次(随访时间 3 个月至 3 年)其终丝直径无增粗,这也说明终丝脂肪化可能存在时间进程,尚需更长的随访时间验证终丝增粗/终丝脂肪化停止的具体时间截点。

本研究是国内外首次分析不同年龄段终丝脂

肪浸润/脂肪瘤型脊髓拴系综合征患儿临床特征与终丝离断术疗效的临床研究,观察结果提示该亚型存在不可逆性和终身神经功能缺损的风险,且年龄越大出现临床症状的概率越高,经终丝离断术治疗后大部分患儿仍可有不同程度的神经功能缺损症状。终丝离断术是一种低风险手术,预防性终丝离断术,尤其是 3 岁前的患儿,由于症状少或无症状手术后可预防终丝脂肪化进展而导致的神经功能损伤。然而,本研究仅为一项回顾性研究,存在一定的局限性:(1)部分患儿随访时间不足 1 年。(2)样本量较小,尤其是学龄前期和学龄期患儿例数较少,所得统计学结果的代表性有限。(3)客观指标较少,如残余尿量检查,因部分患儿无法自主排尿或无法憋尿,从而影响结果的准确性^[22-23];此外,大多数评价脊髓拴系综合征手术疗效的量表仅适合严重神经功能缺损且配合度较高的成人,并不适用于终丝脂肪浸润/脂肪瘤型脊髓拴系综合征患儿,故本研究选择临床医师或家长的主观评价标准。未来将进一步扩大样本量,开展前瞻性、长时间随访观察,开发更加客观的评价指标,以为预防性终丝离断术提供高级别临床证据研究的支持。

利益冲突 无

参 考 文 献

- [1] Lew SM, Kothbauer KF. Tethered cord syndrome: an updated review[J]. *Pediatr Neurosurg*, 2007, 43:236-248.
- [2] Kashlan ON, Wilkinson DA, Morgenstern H, Khalsa SS, Maher CO. Predictors of surgical treatment in children with tethered fibrofatty filum terminale[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2019, 1:1-8.
- [3] Svokos K, Batista-Silverman L, Graber SJ, O'Neill BR, Handler MH. International survey on the management of lumbosacral cutaneous stigmata in infants with suspected occult spinal dysraphism[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2021, 28:592-599.
- [4] Day EL, Proctor MR, Scott RM. Surgical volume of simple tethered spinal cord releases: review of a large pediatric neurosurgical service experience[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2020, 26:60-64.
- [5] Edström E, Wesslén C, Fletcher-Sandersjö A, Elmi-Terander A, Sandvik U. Filum terminale transection in pediatric tethered cord syndrome: a single center, population-based, cohort study of 95 cases[J]. *Acta Neurochir (Wien)*, 2022, 164:1473-1480.
- [6] Greuter L, Licci M, Terrier A, Guzman R, Soleman J. Minimal invasive interlaminar approach for untethering of fatty filum terminale in pediatric patients: how I do it [J]. *Acta Neurochir (Wien)*, 2022, 164:1481-1484.
- [7] Oh JE, Lim GY, Kim HW, Kim SY. Filum terminale lipoma revealed by screening spinal ultrasonography in infants with simple sacral dimple[J]. *Childs Nerv Syst*, 2020, 36:1037-1042.
- [8] Ostling LR, Bierbrauer KS, Kuntz CT. Outcome, reoperation, and complications in 99 consecutive children operated for tight or fatty filum[J]. *World Neurosurg*, 2012, 77:187-191.
- [9] Tuite GF, Thompson D, Austin PF, Bauer SB. Evaluation and

- management of tethered cord syndrome in occult spinal dysraphism: recommendations from the international children's continence society[J]. *NeuroUrol Urodyn*, 2018, 37:890-903.
- [10] Yaltrık K, El TN, Pierson MJ, Puryear A, Atalay B, Elbabaa SK. Management of concomitant scoliosis and tethered cord syndrome in non-spina bifida pediatric population[J]. *Childs Nerv Syst*, 2017, 33:1899-1903.
- [11] Wykes V, Desai D, Thompson DN. Asymptomatic lumbosacral lipomas: a natural history study[J]. *Childs Nerv Syst*, 2012, 28: 1731-1739.
- [12] Kulkarni AV, Pierre - Kahn A, Zerah M. Conservative management of asymptomatic spinal lipomas of the conus[J]. *Neurosurgery*, 2004, 54:868-875.
- [13] Wang XS, Zhang XR, Cao HB, Yang ZG, Cheng ZH, Jing SY, Liu Y, Li X. Explore the relationship between surgical strategies and outcomes of infantile spinal dysraphism tethered cord[J]. *Lin Chuang Xiao Er Wai Ke Za Zhi*, 2015, 14:173-177. [王贤书, 张晓茹, 曹红宾, 杨志国, 程征海, 景世元, 刘叶, 李鑫. 婴儿脊神经管畸形并脊髓栓系手术方案及预后关系的探讨[J]. *临床小儿外科杂志*, 2015, 14:173-177.]
- [14] McVeigh LG, Anokwute MC, Chen S, Jea A. Spinal column shortening for tethered cord syndrome: a systematic review and individual patient data meta-analysis[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2022, 4:1-10.
- [15] Day EL, Proctor MR, Scott RM. Surgical volume of simple tethered spinal cord releases: review of a large pediatric neurosurgical service experience[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2020, 26:60-64.
- [16] Bhimani AD, Selner AN, Patel JB, Hobbs JG, Esfahani DR, Behbahani M, Zayyad Z, Nikas D, Mehta AI. Pediatric tethered cord release: an epidemiological and postoperative complication analysis[J]. *J Spine Surg*, 2019, 5:337-350.
- [17] Witkamp TD, Vandertop WP, Beek FJ, Notermans NC, Gooskens RH, van Waes PF. Medullary cone movement in subjects with a normal spinal cord and in patients with a tethered spinal cord[J]. *Radiology*, 2001, 220:208-212.
- [18] Kim AH, Kasliwal MK, McNeish B, Silvera VM, Proctor MR, Smith ER. Features of the lumbar spine on magnetic resonance images following sectioning of filum terminale[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2011, 8:384-389.
- [19] Thompson EM, Strong MJ, Warren G, Woltjer RL, Selden NR. Clinical significance of imaging and histological characteristics of filum terminale in tethered cord syndrome[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2014, 13:255-259.
- [20] Bulsara KR, Zomorodi AR, Enterline DS, George TM. The value of magnetic resonance imaging in the evaluation of fatty filum terminale[J]. *Neurosurgery*, 2004, 54:375-380.
- [21] Howells M, Hamby T, Honeycutt J, Donahue DJ. Detethering of MRI - demonstrated tethered cord syndrome [J]. *Pediatr Neurosurg*, 2022, 57:85-92.
- [22] Park K. Urological evaluation of tethered cord syndrome [J]. *J Korean Neurosurg Soc*, 2020, 63:358-365.
- [23] Fuentes M, Magalhães J, Barroso U Jr. Diagnosis and management of bladder dysfunction in neurologically normal children[J]. *Front Pediatr*, 2019, 7:298.

(收稿日期:2023-04-05)

(本文编辑:袁云)

· 读者 · 作者 · 编者 ·

《中国现代神经疾病杂志》编辑部关于稿件作者署名、关键词选取、基金项目著录和摘要撰写的要求

《中国现代神经疾病杂志》编辑部对来稿中的作者署名、关键词选取、基金项目著录和摘要撰写的具体要求如下:

1. 作者署名 作者应是参与文稿专题研究工作的主要人员,应对全文内容负责,并能根据编辑部的修改意见进行核修,是论文的法定主权人和责任者。作者署名的次序应按参加者对论文的贡献大小排序。排序应在投稿时确定,在编排过程中不应再作更改。对仅参与提供资金或收集资料者不能列为作者;仅对科研小组进行一般管理者也不宜列为作者。集体署名的文章,必须明确该文的主要负责人(执笔者)。作者中若有外籍作者,应征得本人同意,并有证明信。对协助工作或提供资料、材料者,可放在文后致谢,但亦应事先征得被感谢人的同意。作者单位名称(应写全称)及邮政编码脚注于文章首页左下方,同时应注明通讯作者姓名及其Email地址。

2. 关键词选取 论著类稿件均应标引3~5个关键词。关键词请尽量选取美国国立医学图书馆编辑的最新版 *Index Medicus* 中医学主题词表(*MeSH*)内所列的词。若最新版 *MeSH* 中尚无相应的词,可根据树状结构表选取最直接的上位主题词,必要时可采用习用的自由词排列于最后。关键词中的缩写词应按 *MeSH* 还原为全称。

3. 基金项目著录 论文所涉及的课题如为国家或部、省级等基金项目或属攻关项目,应脚注于文题页左下方,并在圆括号内注明其项目编号,如:“基金项目:xxxx(项目编号:xxxx)”。基金项目名称应按照国家有关部门规定的正式名称书写,多项基金项目应以“;”隔开逐条列出。并附基金项目证明复印件。由厂商赞助的课题应在资金来源处注明。

4. 摘要撰写 论著类稿件须附中、英文摘要。摘要的内容必须包括研究背景(Background)或目的(Objective)、方法(Methods)、结果(Results)及结论(Conclusions)共四部分。一般采用第三人称撰写,不用“本文”、“作者”等主语,不列图、表,不引用文献,不加评论和解释。摘要应客观、如实地反映文章原文,不得添加原文中所没有的内容。中文摘要以不超过800字为宜,英文摘要应与中文摘要相对应。英文摘要中应提供正式对外交流的英文单位名称。其他各类稿件均应附简要的中英文摘要,摘要内容要客观全面地反映文章的中心内容,中英文摘要内容要一致。