

胸腔镜和开胸手术治疗儿童先天性肺气道畸形*

孟庆磊 鲍俊涛** 张书峰 王晓晖

(河南省人民医院小儿外科, 郑州 450003)

【摘要】 目的 探讨胸腔镜和传统开胸手术治疗儿童先天性肺气道畸形的疗效。**方法** 回顾性分析 2014 年 5 月 ~ 2019 年 8 月手术治疗的 32 例先天性肺气道畸形患儿的临床资料, 前 11 例行开胸手术, 2017 年 6 月后的 21 例行三孔胸腔镜手术, 观察 2 组手术时间、术中出血量、胸腔引流时间、术后住院时间和并发症等。**结果** 32 例手术均顺利完成, 胸腔镜组 1 例(4.8%) 中转开胸, 1 例(4.8%) 行二次手术。胸腔镜和开胸手术时间分别为 (113.2 ± 20.6) 、 (97.6 ± 11.1) min, 术中失血量为 (3.5 ± 1.2) 、 (3.6 ± 0.9) ml/kg, 引流管留置时间中位数为 3.0(2 ~ 22)、3.0(2 ~ 5) d, 术后住院时间为 5.0(4 ~ 23)、5.0(4 ~ 21) d。术后并发症气胸分别为 2、1 例, 肺不张 1、0 例, 肺部感染 2、2 例。32 例均获得随访, 随访时间胸腔镜组 (13.7 ± 4.4) 月, 开胸组 (13.6 ± 5.6) 月, 无死亡, 生长发育与正常同龄儿相仿, 无肺部相关并发症。**结论** 胸腔镜手术与开胸手术治疗儿童先天性肺气道畸形疗效均满意, 胸腔镜手术创口小, 美观, 建议推广。

【关键词】 先天性肺气道畸形; 胸腔镜手术; 儿童

文献标识:A 文章编号:1009-6604(2020)09-0822-04

doi:10.3969/j.issn.1009-6604.2020.09.012

Clinical Efficacy of Thoracoscopy and Thoracotomy for Congenital Pulmonary Airway Malformation in Children Meng Qinglei, Bao Juntao, Zhang Shufeng, et al. Department of Pediatric Surgery, Henan Provincial People's Hospital, Zhengzhou 450003, China

Corresponding author: Bao Juntao, E-mail: 13783603568@163.com

【Abstract】 Objective To investigate the therapeutic effect of thoracoscopy and traditional thoracotomy for congenital pulmonary airway malformation (CPAM) in children. **Methods** A retrospective analysis was performed on clinical characteristics of 32 children with CPAM who underwent surgical treatment from May 2014 to August 2019. Thoracotomy was performed in the first group of 11 patients, and three-hole thoracoscopic surgery was performed in the remaining 21 patients after June 2017. The operative duration, intraoperative volume of blood loss, postoperative drainage time, hospitalization time and complications of the two groups were observed. **Results** All the 32 cases of operations were successfully completed. In thoracoscopic group, 1 case (4.8%) underwent a conversion to thoracotomy, and 1 case (4.8%) underwent a secondary surgery. The operation time was (113.2 ± 20.6) and (97.6 ± 11.1) min, the intraoperative blood loss was (3.5 ± 1.2) and (3.6 ± 0.9) ml/kg, the median duration of catheter indwelling was 3.0 (2 ~ 22) and 3.0 (2 ~ 5) d, the length of postoperative hospitalization was 5.0 (4 ~ 23) and 5.0 (4 ~ 21) d in the thoracoscopic group and thoracotomy group, respectively. Postoperative complications were pneumothorax in 2 and 1 case, atelectasis in 1 and 0 case, and pulmonary infection in 2 and 2 cases in the thoracoscopic group and thoracotomy group, respectively. All the 32 children were followed up. The postoperative follow-up time of thoracoscopic group was (13.7 ± 4.4) months, and thoracotomy group was (13.6 ± 5.6) months. No death occurred. The growth and development in all the patients were similar to normal infants of the same age, without pulmonary complications. **Conclusions** Thoracoscopic surgery and thoracotomy are satisfactory in the treatment of CPAM in children. Thoracoscopic surgery has small and cosmetic incision, which is recommended to be popularized.

【Key Words】 Congenital pulmonary airway malformation; Thoracoscopy; Child

先天性肺气道畸形(congenital pulmonary airway malformation, CPAM)是一种罕见的肺发育畸形疾病, 表现为肺部囊性病变。目前大部分 CPAM 在产

前即可得到诊断, 产后手术切除是 CPAM 的首选治疗方法, 总体预后很好。近年来, 大部分儿科中心已由传统开胸手术转为电视胸腔镜手术(video-

* 基金项目: 河南省医学科技攻关计划项目(201602172)

** 通讯作者, E-mail: 13783603568@126.com

assisted thoracoscopic surgery, VATS), CPAM 是胸腔镜应用中增长最快的疾病之一^[1,2]。我科自 2017 年 6 月起开展胸腔镜手术治疗 CPAM。现回顾性分析 2014 年 5 月~2019 年 8 月我科 CPAM 资料,21 例行胸腔镜手术,11 例行开胸手术,总结单中心 VATS 治疗小儿 CPAM 的经验,探讨优化胸腔镜手术的可行性建议,为普及胸腔镜治疗 CPAM 提供依据。

1 临床资料与方法

1.1 一般资料

2014 年 5 月~2019 年 8 月共 32 例 CPAM 行手

术治疗,其中 29 例产前行三维彩超拟诊为 CPAM,出生后 1 个月内行胸部 CT 检查确诊,另 3 例因反复呼吸道感染做胸部 CT 确诊。2017 年 6 月前的 11 例行开胸手术,之后 21 例行胸腔镜手术。2 组性别、手术的年龄和体重、产前拟诊例数、畸形位置和 Stocker 分型^[3,4]见表 1。

所有患儿均符合 CPAM 术前诊断标准^[4],22 例无症状 CPAM 行择期手术治疗,10 例出现临床症状后手术,其中 7 例为产前拟诊、产后确诊患儿,另 3 例因反复呼吸道感染经 CT 检查确诊 CPAM 后即行手术治疗。

表 1 2 组一般资料

组别	性别		手术年龄 (月)	体重 (kg)	产前拟诊	切除部位					Stocker 分型		
	男	女				RUL	RML	RLL	LUL	LLL	1 型	2 型	4 型
胸腔镜 (n=21)	12	9	8.0(1~68)	9.2±3.7	20	3	1	5	2	10	14	5	2
开胸 (n=11)	7	4	9.0(4.7~35)	9.7±3.0	9	1	1	3	2	4	7	3	1

切除部位:RUL,右肺上叶;RML,右肺中叶;RLL,右肺下叶;LUL,左肺上叶;LLL,左肺下叶
Stocker 分型^[3,4]:1 型,大囊肿型;2 型,微囊肿型;4 型,外周薄壁囊肿型
正态分布计量资料用均数±标准差表示,非正态分布计量资料用中位数(最小值~最大值)表示

1.2 手术方法

胸腔镜手术^[5]:双腔气管插管单肺通气,静吸复合全身麻醉,左侧卧位,胸部加垫以抬高患侧胸腔,以右肺上叶切除为例,右侧第 5 肋间腋后线置入 5 mm trocar 及胸腔镜,6 mm Hg 压力下探查。第 6 肋间腋中线、第 7 肋间腋后线各置 5 mm trocar。松解粘连胸膜,充分暴露病变肺叶,超声刀逐一离断右肺上叶之动静脉及支气管分支,以 Hem-o-lok 导入钛夹,结扎近端确切,远端超声刀横断,完整切除病变肺叶。

开胸手术^[6]:单腔气管插管双肺通气,麻醉方式及体位同胸腔镜,经右侧第 4 肋间后外侧 7 cm 切口,逐层切开皮肤、皮下组织、肌层,切开肋间肌、胸膜,撑开器撑开肋间进入胸腔,分离胸腔粘连,结扎、切断右肺上叶之动静脉及支气管分支,切除病变肺叶。

1.3 观察指标

记录病历中的手术时间、术中出血量(计算单位体重的出血量)、肺切除部位、中转手术情况;围手术期并发症包括气胸、肺不张、肺部感染(均通过胸部影像学确诊),二次手术;胸腔引流时间和术后

住院时间。

2 结果

胸腔镜组 1 例(4.8%)因术中肺动脉损伤镜下无法控制出血被动中转开胸,1 例(4.8%)术后肺部感染,抗感染治疗 2 周仍控制不佳,行胸部 CT 提示病灶残留(约 1/4),行二次胸腔镜手术。开胸组肺叶均完整切除。2 组手术时间、术中失血量、引流管留置时间、术后住院时间、术后并发症见表 2。围手术期气胸胸腔镜组 2 例,均为少量气胸,保守治疗 7 天复查胸片气胸消失;开胸组 1 例,经调整引流管位置、重新固定引流管,3 天后复查胸片治愈。肺不张胸腔镜组 1 例,抗感染、雾化稀释痰液、健侧卧位叩背排痰,2 周治愈。肺部感染 2 组各 2 例,胸腔镜组 1 例为上述病灶残留合并肺部感染者,抗感染联合二次手术治愈,其余 3 例抗感染治愈。术后病理:均符合先天性肺气道畸形,Stocker 分型 1 型 21 例,2 型 8 例,4 型 3 例。

术后均门诊随访,随访时间胸腔镜组(13.7±4.4)月,开胸组(13.6±5.6)月,无死亡,生长发育与同龄儿相仿,无胸骨畸形、呼吸衰竭等并发症。

表 2 2 组手术情况及围手术期并发症

组别	手术时间 (min)	失血量 (ml/kg)	引流时间 (d)	术后住院 时间(d)	气胸 [n(%)]	肺不张 [n(%)]	肺部感染 [n(%)]	二次手术 [n(%)]
胸腔镜 (n=21)	113.2±20.6	3.5±1.2	3.0(2~22)	5.0(4~23)	2(9.5)	1(4.8)	2(9.5)	1(4.8)
开胸 (n=11)	97.6±11.1	3.6±0.9	3.0(2~5)	5.0(4~21)	1(9.1)	0	2(18.2)	0

正态分布计量资料用均数±标准差表示,非正态分布计量资料用中位数(最小值~最大值)表示

3 讨论

CPAM 是最常见的先天性肺发育异常,除 4 型外没有遗传易感性^[1]。Stocker 根据病变起源所在气管树的不同位置将 CPAM 分为 5 种亚型(0 型、1 型、2 型、3 型和 4 型)^[3,4],各种类型的 CPAM 具有特定的临床特征,临床表现差异很大。随着产前超声检查诊断 CPAM 的数量增加,症状性 CPAM 百分比整体下降。妊娠中期胎儿超声检查显示肺部微囊性或大囊性改变,MRI 检查可进一步明确。如果产前诊断考虑为 CPAM,应在出生后行胸部 CT 检查进一步确诊^[3]。CPAM 合并症包括反复感染、自发性气胸和胸膜肺母细胞瘤(pleuropulmonary blastoma, PPB)等。发生 PPB 的危险因素包括 4 型 CPAM、具有多灶或双侧囊性病变、具有 PPB 家族史以及合并气胸^[3]。

对于无症状 CPAM 的手术时机存在争议。大部分学者建议早期手术切除,以免最终出现反复感染、自发性气胸甚至肺部恶性肿瘤等。本组 32 例中 22 例为无症状 CPAM,行择期手术,10 例出现临床症状后手术,其中 7 例为产前拟诊、产后确诊患儿,因出现肺部感染行手术治疗,中位年龄 14 个月,3 例因反复呼吸道感染分别在 7.2 月、9.3 月和 12 月经胸部 CT 检查确诊 CPAM 后即行手术治疗。Aziz 等^[7]报道 35 例无症状 CPAM 婴儿,15 例无症状择期手术(6 例 6 个月前行择期手术,中位年龄 4.5 月,9 例 6 个月后行择期手术,中位年龄 13 个月),3 例在 7、8 和 11 个月出现肺部感染后手术,12 例出现感染或气胸后手术(中位年龄 6 岁),其余 5 例仍无症状,未接受切除手术(中位随访时间 3 年)。Wong 等^[8]报道单中心 21 年手术治疗 35 例 CPAM,21 例最初无症状患者中 18 例出现临床症状(肺炎 43%,呼吸窘迫 14% 和自发性气胸 14%)手术,8 例术后出现并发症(气胸 2 例,脓毒症 2 例,病灶残留 1 例,出血 1 例,支气管胸膜瘘 1 例,肺炎 1 例)。这些研究均表明,无症状 CPAM 终将出现症状,尽早手术可能有助于避免 CPAM 合并症,降低术后并发症。

对于择期手术患儿年龄及体重的要求也有争议。Style 等^[9]对 110 例无症状 CPAM 行择期手术,年龄 ≤ 4 个月和 > 4 个月患儿并发症发生率和住院时间差异无显著性,且早期切除者的手术时间更短,从而认为在 4 个月之前尽早选择性切除先天性肺畸形是可行的,不会增加手术风险。Ito 等^[10]认为如果病情稳定,建议 1 岁以后手术,胸腔镜肺叶切除术更倾向于年龄 > 18 个月或体重 > 10 kg 后进行。

Kunisaki 等^[11]则认为 6 个月是胸腔镜肺叶切除术的首选年龄。国内专家建议如有症状则应尽快手术,如无症状,可于 2~6 月龄时择期手术治疗。本研究 2 组中位年龄和平均体重分别为 8 个月、 (9.2 ± 3.7) kg 和 9 个月、 (9.7 ± 3.0) kg,术后并发症发生率为 28% (9/32),虽均治愈,但高于 Style 等^[9]的并发症发生率(15%),原因一方面可能我中心患儿手术年龄偏大,另一方面样本量较小。我们认为择期手术年龄的选择仍需通过更多的大样本、前瞻性研究来论证。

研究已经证实无论开胸还是胸腔镜治疗 CPAM 的安全性和有效性都是确定的,因此近年来更多的研究是对二者的比较。Kunisaki 等^[11]比较 49 例胸腔镜和 13 例开胸肺叶切除术的围手术期指标,2 组中位失血量(2.0 vs. 1.1 ml/kg)、胸腔引流时间(3 vs. 3 d)、住院时间(3 vs. 3 d)和手术并发症发生率(30.6% vs. 30.8%)差异均无显著性,也就是说,胸腔镜和开胸手术均具有相似的围手术期结局。Polites 等^[12]报道 1120 例先天性肺囊性疾病患儿的肺叶切除术,其中 441 例(39.4%)行胸腔镜手术,认为胸腔镜可以逐渐替代开胸手术治疗此类疾病。胸腔镜手术并发症有其特殊性,围手术期并发症主要是手术操作相关并发症,如放置套管损伤肺实质导致肺实质出血和漏气;肋间神经、血管损伤引起术后疼痛及出血;胸内感染灶切除时防护不够继发胸腔感染。术后痰块堵塞、余肺移位及支气管扭曲等可导致肺不张。胸部大血管尤其是肺血管损伤出血是胸腔镜肺手术中常见的中转开胸的原因,也是最棘手和紧急的并发症^[13]。本研究胸腔镜组 1 例术中损伤肺动脉分支血管,出现难以控制的大出血,中转开胸;1 例术后严重肺部感染,复查胸部 CT 显示病灶残留,行二次手术切除残余病灶。降低围手术期并发症,应术前根据病变部位、手术种类和胸部影像等设计胸壁套管位置,术中操作轻柔,术中做水泡检查有无漏气,一旦出现无法用胸腔镜处理的出血,应及时开胸手术止血。感染病灶切除后要认真冲洗胸腔,术后胸腔引流要通畅。随着胸腔镜例数增多、技术及熟练程度提高,并发症会逐渐减少,手术时间缩短。

与开胸手术相比,胸腔镜的潜在优势包括减轻术后疼痛、缩短住院时间、改善美容效果以及降低包括脊柱侧弯、肩关节活动度和乳房畸形在内的胸壁畸形的发生率。Lawal 等^[14]对 62 例因良性胸腔疾病接受胸腔镜(55%)或开胸手术(45%)的婴儿和儿童进行肌肉骨骼结局、肩部功能和美容效果评估,结果显示,胸腔镜术后胸部不对称性明显降低;开胸

组乳头位置发生了显著变化;开胸组脊柱侧弯发生率更高,但弯曲度 $< 20^\circ$,在儿童期不需要治疗;胸腔镜可以显著改善美容效果,开胸手术后满意度较低,10% 希望修复瘢痕,而胸腔镜组中无人想修复瘢痕;2 组肩关节运动范围无显著差异。另外,多项研究显示开胸组术后肩关节屈曲、外展和内收范围减少,肩部力量更差,胸腔镜术后可更早恢复肩部运动^[15]。

本研究中 21 例胸腔镜手术全部采用切除病变肺叶治疗 CPAM,随着胸腔镜技术的不断发展,国内外部分儿外科和胸科医生尝试胸腔镜解剖性肺段切除术治疗儿童先天性肺疾病,相对于肺叶切除术而言,肺段切除保留了更多的肺组织,从而保留了更多的肺功能^[16]。研究^[17-19]显示胸腔镜解剖性肺段切除术治疗先天性肺畸形是一种安全、有效的肺实质保存方法,节省了较大的气道解剖结构,并发症发生率与胸腔镜肺叶切除术相当,但这种保肺技术适合较小的病变。胸腔镜提供的放大视野使分段解剖平面的识别更加容易,有助于安全解剖和切除。程凯昇等^[20]报道胸腔镜解剖性肺段切除治疗儿童先天性肺疾病 151 例,认为儿童胸腔镜解剖性肺段切除作为一种保肺手术具有较高的安全性与可行性,但该术式需要术者做到对各肺段主要动静脉、支气管、肺组织分别进行精细化解剖处理,应在熟练掌握儿童胸腔镜肺叶精准解剖后逐步实施开展。

综上,对于 CPAM,我们更倾向于尽早手术切除,避免并发症的发生。胸腔镜与开胸手术治疗 CPAM 疗效均满意,胸腔镜手术切口小、美观,建议推广。儿童胸腔镜解剖性肺段切除术作为一种保肺手术,目前国内外开展较少,需要更多、更细致的研究进一步评估其优势及远期效果,为临床治疗选择提供更多的依据。

参考文献

- 1 Leblanc C, Baron M, Desselas E, et al. Congenital pulmonary airway malformations; state-of-the-art review for pediatrician's use. *Eur J Pediatr*, 2017, 176(12): 1559 - 1571.
- 2 Mattioli G, Pio L, Disma NM, et al. Congenital lung malformations; shifting from open to thoracoscopic surgery. *Pediatr Neonatol*, 2016, 57(6): 463 - 466.
- 3 Stocker JT. Congenital pulmonary airway malformation: a new name for and an expanded classification of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Histopathology*, 2002, 41(2): 424 - 431.
- 4 李景娜, 马丽霜. 先天性肺囊腺瘤诊疗进展. *临床小儿外科杂志*, 2017, 16(2): 194 - 197.

- 5 王俊, 许林, 李运. 胸腔镜外科学. 北京: 人民卫生出版社, 2017. 80 - 95.
- 6 王果, 李振东. 小儿外科手术学. 北京: 人民卫生出版社, 2010. 148 - 156.
- 7 Aziz D, Langer JC, Tuuha SE, et al. Prenatally diagnosed asymptomatic congenital cystic adenomatoid malformation: to resect or not? *J Pediatr Surg*, 2004, 39(3): 329 - 334.
- 8 Wong A, Vieten D, Singh S, et al. Long-term outcome of asymptomatic patients with congenital cystic adenomatoid malformation. *Pediatr Surg Int*, 2009, 25(6): 479 - 485.
- 9 Style CC, Cass DD, Veria MA, et al. Early vs late resection of asymptomatic congenital lung malformations. *J Pediatr Surg*, 2019, 54(1): 70 - 74.
- 10 Ito A, Takao M, Shimamoto A, et al. Introduction of thoracoscopic surgery for congenital pulmonary airway malformation in infants: review of 13 consecutive surgical cases. *J Thorac Dis*, 2019, 11(12): 5079 - 5086.
- 11 Kunisaki SM, Powelson IA, Haydar B, et al. Thoracoscopic vs open lobectomy in infants and young children with congenital lung malformations. *J Am Coll Surg*, 2014, 218(2): 261 - 270.
- 12 Polites SF, Habermann EB, Zarroug AE, et al. Thoracoscopic vs open resection of congenital cystic lung disease: utilization and outcomes in 1120 children in the United States. *J Pediatr Surg*, 2015, 51(7): 1101 - 1105.
- 13 张振龙, 潘小杰, 欧德彬. 胸腔镜肺叶切除术中血管损伤出血的原因及处理. *中国微创外科杂志*, 2019, 19(2): 111 - 114.
- 14 Lawal TA, Gosemann JH, Kuebler JF, et al. Thoracoscopy versus thoracotomy improves midterm musculoskeletal status and cosmesis in infants and children. *Ann Thorac Surg*, 2009, 87(1): 224 - 228.
- 15 Kucukarslan N, Kirilmaz A, Arsalan Y, et al. Muscle sparing thoracotomy in pediatric age: a comparative study with standard posterolateral thoracotomy. *Pediatr Surg Int*, 2006, 22(10): 779 - 783.
- 16 林宗武, 蒋伟, 王群, 等. 胸腔镜解剖性肺段切除术 20 例临床分析. *中国胸心血管外科临床杂志*, 2012, 19(3): 270 - 273.
- 17 Johnson SM, Grace N, Edwards MJ, et al. Thoracoscopic segmentectomy for treatment of congenital lung malformations. *J Pediatr Surg*, 2011, 46(12): 2265 - 2269.
- 18 Fascetti-Leon F, Gobbi D, Pavia SV, et al. Sparing-lung surgery for the treatment of congenital lung malformations. *J Pediatr Surg*, 2013, 48(7): 1476 - 1480.
- 19 Rothenberg SS, Shipman K, Kay S, et al. Thoracoscopic segmentectomy for congenital and acquired pulmonary disease: a case for lung-sparing surgery. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*, 2014, 24(1): 50 - 54.
- 20 程凯昇, 袁森, 徐畅, 等. 胸腔镜解剖性肺段切除治疗儿童先天性肺疾病临床分析. *四川大学学报(医学版)*, 2019, 50(4): 594 - 597.

(收稿日期: 2020 - 04 - 26)

(修回日期: 2020 - 08 - 01)

(责任编辑: 王惠群)