DOI:10.16016/j.1000-5404.202008064

胸腔镜与传统开胸手术治疗儿童先天性肺隔离症的临床疗效对比

赵生亮,潘征夏,李勇刚,安 永,赵 录,金 鑫,扶 剑,吴 春 400014 重庆,重庆医科大学附属儿童医院胸心外科,儿童发育疾病研究教育部重点实验室

[摘要] **目的** 对比分析胸腔镜手术与传统开胸手术治疗儿童先天性肺隔离症的临床疗效,探讨胸腔镜治疗儿童先天性肺隔离症的价值。**方法** 回顾性分析2015年1月至2020年1月于重庆医科大学附属儿童医院心胸外科接受手术治疗的41例先天性肺隔离症患儿的临床资料,按手术方式分为开胸组和胸腔镜组。临床手术方式的选择由制定的开胸组及胸腔镜组患儿纳入标准决定。开胸组20例,其中男性12例,女性8例;年龄3 d至12岁8个月[(86.07±38.96)个月]。胸腔镜组21例,其中男性11例,女性10例;年龄4个月至11岁2个月[(99.06±57.38)个月]。对两组患儿随访5个月至5年,观察并对比分析两组患儿手术时间、术中出血量、胸腔引流时间、术后住院时间等手术指标以及病死率、复发率和并发症发生率等情况。**结果** 两组患儿均顺利完成手术,无1例死亡及严重并发症发生。两组患儿年龄、体质量、发病部位差异无统计学意义($P>0.05$),胸腔镜手术组中有1例中转开胸手术。胸腔镜组术中出血量、术后机械通气时间、胸腔引流时间、CCU滞留时间及住院时间均优于开胸组患儿($P<0.05$),胸腔镜组手术时间较开胸组时间长($P<0.05$)。**结论** 胸腔镜手术与开胸手术均能有效治疗儿童先天性肺隔离症。与开胸手术相比,胸腔镜创伤小、恢复快、并发症更少。

[关键词] 肺隔离症;胸腔镜手术;传统开胸手术;肺叶切除术;儿童
[中图法分类号] R181.32; R615; R726.553 [文献标志码] A

Clinical efficacy of thoracoscopy versus traditional thoracotomy in treatment of congenital pulmonary sequestration in children

ZHAO Shengliang, PAN Zhengxia, LI Yonggang, AN Yong, ZHAO Lu, JIN Xin, FU Jian, WU Chun Department of Cardiothoracic Surgery, Key Laboratory of Child Development and Disorders of Ministry of Education, Children's Hospital of Chongqing Medical University, Chongqing, 400014, China

[**Abstract**] **Objective** To compare the clinical efficacy between thoracoscopic surgery and traditional thoracotomy in the treatment for children with congenital pulmonary sequestration (PS), and investigate the value of thoracoscopic surgery for PS. **Methods** The clinical data of 41 children diagnosed with congenital PS and surgically treated in our hospital from January 2015 to January 2020 were collected and retrospectively analyzed. The choice of clinical surgical methods was determined by the inclusion criteria for patients of the 2 groups respectively. According to the received surgical methods, these children were assigned into thoracotomy group ($n=20$, 12 males and 8 females, 86.07±38.96 months, ranging from 3 d to 12 years and 8 months old) and thoracoscopy group ($n=21$, 11 males and 10 females, 99.06±57.38 months, ranging from 4 months to 11 years and 2 months old). All of them were followed up for 5 months to 5 years. The operation time, intraoperative blood loss, chest drainage time, postoperative hospital stay and other surgical indicators were compared and analyzed between the 2 groups, so were the mortality, incidence of complications and recurrence. **Results** Both groups were successfully completed the surgery with no death or serious complications. There were no significant differences in age, weight and sites of disease between the 2 groups ($P>0.05$), and 1 case in the thoracoscopy group was converted to thoracotomy during operation due to severe

[通信作者] 吴 春,E-mail:wuchun0312@sina.com

1000-5404/Copyright © 2021, 陆军军医大学(第三军医大学)。这篇开放获取文章遵循 CC BY 许可协议(https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/)

pleural adhesion. The intraoperative blood loss, and times for postoperative mechanical ventilation, chest drainage tube indwelling, retention in coronary care unit (CCU) and hospital stay in the thoracoscopy group were statistically better than those in the thoracotomy group ($P<0.05$). However, the operation time in the thoracoscopy group was obviously longer than that in the thoracotomy group ($P<0.05$). **Conclusion** Both thoracoscopic surgery and thoracotomy can effectively treat congenital PS in children. Compared with thoracotomy, thoracoscopy has less trauma, faster recovery and fewer complications.

[**Key words**] pulmonary sequestration; thoracoscopic surgery; traditional thoracotomy; lobectomy; child

Corresponding author: WU Chun, E-mail: wuchun0312@sina.com

肺隔离症(pulmonary sequestration,PS)是以血管异常为基础的先天性肺发育畸形,占先天性肺畸形的0.15%~6.45%,在普通人群中的发病率为1/20 000,特点是大量无功能的肺组织从正常的气管支气管树中分离出来,血管供应来自全身动脉[1]。根据异常肺组织有无完整脏层胸膜与正常肺组织分界,可分为叶内型、叶外型及混合型[2]。肺隔离症常伴有多种临床症状,包括咳嗽、胸痛、咯血、肺部感染等,少数患者甚至可能出现癌变[3-4]。肺隔离症的治疗既往通过传统开胸手术,但随着胸腔镜手术(video-assisted thoracoscopic surgery,VATS)的不断发展,采用胸腔镜手术治疗肺隔离症的临床报道越来越多,与传统开胸手术相比,胸腔镜手术在婴幼儿肺叶切除术中具有切口美观、创伤小、术后恢复快等优点,已被广泛应用。本研究选取2015年1月至2020年1月于重庆医科大学附属儿童医院心胸外科收治的41例确诊为肺隔离症并行手术治疗的患儿为研究对象,观察胸腔镜手术与传统开胸手术治疗儿童先天性肺隔离症的临床疗效,从而为临床上肺隔离症的手术决策提供参考依据。

1 资料与方法

1.1 一般资料

采用回顾性研究方法选取2015年1月至2020年1月于重庆医科大学附属儿童医院心胸外科收治的41例确诊为肺隔离症并行手术治疗的患儿为研究对象。本研究经过重庆医科大学附属儿童医院伦理委员会批准[(2019)年伦审(研)第(258)号]。本研究获得所有患儿家属的书面知情同意。纳入标准:①患儿伴呼吸困难、反复呼吸道感染、胸闷、胸痛、咯血等症状,联合胸部X线、CT或CTA检查可见异常动脉并明确诊断为先天性肺隔离症;②患儿及家属均在知情的情况下,自愿签署协议书,同意配合手术治疗的患儿。排除标准:①合并其他严重的先天性畸形(心脏畸形、肺部畸形、消化道畸形)同期行相关畸形矫正术的患儿;②未行手术治疗的先天性肺隔离症患儿。

开胸组患儿入选标准:①术前诊断隔离肺体积较大,与纵隔肿物、肺囊肿等难以区分的患儿;②隔离肺合并感染、胸腔粘连严重的患儿。胸腔镜组患儿入选标准:①术前检查一般情况可,能耐受人工气胸而不会出现血氧饱和度下降的患儿;②术前发现隔离肺异常供血血管位于下肺韧带或更低的位置,开胸手术可能会扩大切口的患儿。依据手术方式不同,将20例行传统开胸手术患儿纳入开胸组,21例行胸腔镜组手术患儿纳入胸腔镜组。开胸组中男性患儿12例,女性患儿8例;年龄3 d至12岁8个月[(86.07±38.96)个月];体质量3.47~49.00(25.46±13.54)kg。胸腔镜组男性患儿11例,女性患儿10例;年龄4个月至11岁2个月[(99.06±57.38)个月];体质量7.8~40.0(27.47±18.64)kg。开胸组中6例患儿合并畸形(1例法洛四联症、1例房间隔缺损、1例动脉导管未闭、2例漏斗胸、1例先天性肺气道畸形);胸腔镜组4例患儿合并畸形(1例房间隔缺损、2例漏斗胸、1例先天性肺气道畸形),两组患儿性别、年龄、体质量、隔离肺位置及类型等数据比较差异无统计学意义($P>0.05$),具有可比性,见表1。

1.2 手术方法

开胸组:患儿取健侧卧位,患侧向上,做第4或第5肋间后外侧切口,逐层切断胸壁肌肉,使用肋骨撑开器撑开肋骨,进胸探查,分离至肺下韧带时应警惕异常血管,叶外型隔离肺只做隔离肺组织切除,叶内型以肺叶切除为主。

胸腔镜组:手术采用三孔法,建立人工气胸,CO_2人工气胸压力为4~6 mmHg。手术的关键在于寻找滋养血管,一般滋养血管位于下肺韧带内,分离出异常供血血管,Hem-o-lok结扎后离断。根据术中所见选择肺叶切除术、肺段切除术或不规则肺切除术。术中监测血气,术后常规留置胸腔闭式引流管。

表 1 两组肺隔离症患儿一般资料

组别	n	男/女(例)	年龄(月,$\bar{x}\pm s$)	体质量(kg,$\bar{x}\pm s$)	术前误诊(例)	合并畸形(先心病:漏斗胸:先天性肺气道畸形,例)
开胸组	20	12/8	86.07±38.96	25.46±13.54	1	3:2:1
胸腔镜组	21	11/10	89.06±27.38	27.47±18.64	2	1:2:1
统计值		0.241	-3.723	-1.629	0.309	0.625
P		0.623	0.213	0.104	0.578	0.732

组别	隔离肺位置(左下:右下,例)	隔离肺类型(叶内型:叶外型,例)	异常动脉起源(胸主动脉:腹主动脉:其他,例)	肺叶切除数:楔形切除数:肺段切除数(例)
开胸组	13:7	16:4	17:2:1	15:2:3
胸腔镜组	10:11	15:6	16:1:4	18:2:1
统计值	1.257	0.408	2.141	1.249
P	0.262	0.523	0.343	0.536

1.3 观察指标

观察两组患儿在手术时间、术中出血量、术中输血例数、术后机械通气时间、术后住院时间、CCU 滞留时间、胸腔引流时间等手术指标和术后胸腔积液例数、术后切口感染例数、术后肺不张例数等并发症发生率的差异,并对两组患儿随访 5 个月至 5 年。

1.4 统计学方法

应用 SPSS 22.0 统计软件进行数据分析,对于年龄、体质量、手术时间、术后机械通气时间、胸腔引流时间和术后住院天数等计量资料采用 $\bar{x}\pm s$ 表示。对于性别、发病部位等计数资料以百分比(%)表示,两组间比较采用独立样本 t 检验,当格子的理论频数 $1<T<5$ 时,用校正 χ^2 值,当 $T<1$ 时,采用 Fisher 确切概率法。$P<0.05$ 为差异具有统计学意义。

2 结果

2.1 术前一般情况

两组患儿临床表现无明显差异,41 例患儿中 24 例(58.54%)术前表现为反复发作的肺炎(咳嗽、咳痰、发热、呼吸困难),3 例(7.32%)患儿表现为胸闷、胸痛,14 例(34.15%)患儿无明显症状孕期体检发现,见表 2。41 例患儿均行胸部 X 线及 CT 检查,38 例患儿术前经计算机断层血管造影(computed tomography angiography,CTA)诊断为隔离肺,可见明显异常动脉及隔离肺组织(图 1)。3 例行胸部 CT 平扫患儿中 2 例术前误诊为先天性肺囊肿,1 例误诊为纵隔肿瘤,术后均证实为隔离肺。在本研究中,隔离肺均位于下叶,左下叶比右下叶更常见(左下叶:右下叶=23:18),叶内型隔离肺比叶外型隔离肺更常见(叶内型:叶外型=31:10)。本组 14 例于产前 B 超检查发现胎儿胸部实性或高回声肿块并确定肿块供血来自体循环,经 2 次以上 B 超检查产前诊断为隔离肺,出生后经胸部 CT 平扫加增强进一步明确诊断为隔离肺。

2.2 术中情况

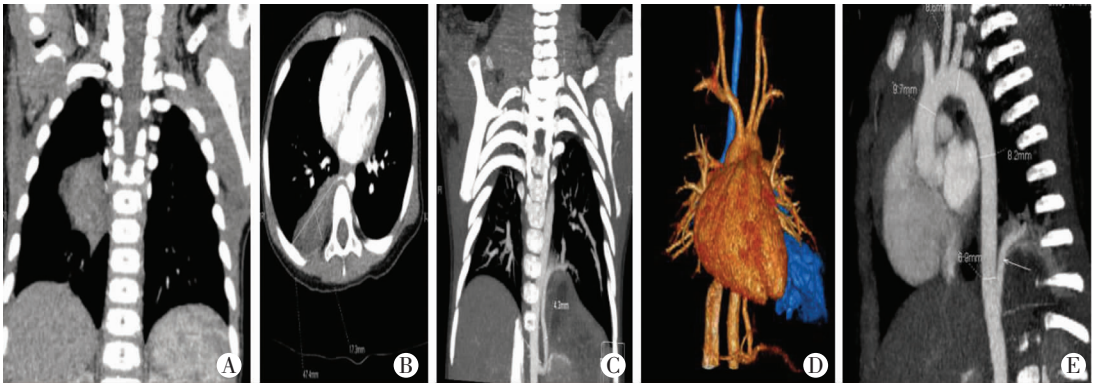
两组患儿均顺利完成手术,胸腔镜组中 1 例因胸腔粘连严重中转为开胸手术。两组术中均发现异常血管,直径为 2.5~5.0 mm。胸腔镜组异常血管分别来源于胸主动脉 16 例,腹主动脉 1 例,膈肌动脉 3 例,肋间动脉 1 例;开胸组异常血管分别来源于胸主动脉 17 例,腹主动脉 2 例,胸壁动脉 1 例。在异常动脉数目方面,有 38 例出现 1 条异常分支,1 例出现 2 条异常分支,2 例出现 3 条异常分支,发现异常静脉回流到奇静脉 2 例,其余静脉均回流至肺静脉。

2.3 术后情况

对两组患儿相关手术指标的数据进行观察分析,胸腔镜组患儿术中出血量、胸腔引流时间、术后机械通气时间、术后住院天数及 CCU 滞留时间均优于开胸组患儿($P<0.05$);胸腔镜组手术时间较开胸组时间长($P<0.05$);两组间输血、切口感染、术后肺不张及术后胸腔积液例数比较,开胸组多于胸腔镜组,但差异无统计学意义($P>0.05$),见表 3。出院后 7 例患儿失访,34 例获得 5 个月至 5 年随访,8 例患儿随访期间发生肺炎,其余病例均恢复良好,两组患儿均顺利完成手术,无 1 例死亡及严重并发症发生。

表 2 两组肺隔离症患儿主要临床表现(例,$n=41$)

组别	n	反复咳嗽、咳痰	气促、呼吸困难	胸闷、胸痛	反复发热	无症状孕期体检发现
开胸组	20	5	2	2	6	5
胸腔镜组	21	6	2	1	3	9
P		0.796	0.959	0.520	0.224	0.228



A:先天性肺隔离症(叶外型)患儿胸部 CT 冠状面;B:先天性肺隔离症患儿胸部 CT 横断面;C~E:先天性肺隔离症患儿 CT 血管造影示腹主动脉左侧壁发出 4.3 mm 分支进入肺内病灶

图 1 计算机断层血管造影诊断儿童先天性隔离肺症

表 3 两组肺隔离症患儿相关手术指标

组别	n	手术时间(h,$\bar{x}\pm s$)	术中出血量(mL,$\bar{x}\pm s$)	术中输血(例)	术后机械通气时间(h,$\bar{x}\pm s$)	术后住院天数(d,$\bar{x}\pm s$)
开胸组	20	1.97±0.57	128.90±85.08	3	109.99±58.70	14.22±3.77
胸腔镜组	21	3.05±1.11	51.13±28.59	2	17.15±7.59	9.08±3.29
统计值		−5.355	20.038	0.287	13.750	14.480
P		0.000	0.000	0.592	0.000	0.000

组别	术后肺不张(例)	CCU 滞留时间(d,$\bar{x}\pm s$)	胸腔引流时间(d,$\bar{x}\pm s$)	术后胸腔积液(例)	切口感染(例)
开胸组	5	4.07±2.03	7.41±3.59	6	1
胸腔镜组	2	2.37±1.19	5.33±3.18	4	0
统计值	1.733	4.660	3.828	0.666	0.001
P	0.188	0.000	0.011	0.414	0.980

3 讨论

肺隔离症是一种先天性畸形,其特征是肺组织发育不良,与气管支气管树和肺动脉缺乏正常联系[5]。在叶内外型中,动脉供应通常来自降主动脉或腹主动脉,少数可来自主动脉弓、膈动脉、胃左动脉等。本研究中动脉供应主要来源于胸主动脉,其次是腹主动脉。该病左肺多于右肺,双侧同时发病极少见,绝大多数位于下叶,约 60%位于后基底段[6]。本研究中患者的特点为男性多于女性,41 例均位于下叶且左叶多于右叶,叶内型多于叶外型,与文献报道一致。

肺隔离症临床上较少见,临床症状无特异性,术前诊断困难,常被误诊为肺囊性腺瘤样畸形、先天性肺囊肿、肺脓肿等而延误治疗,本研究中 2 例患儿术前误诊为先天性肺囊肿,1 例误诊为纵隔肿瘤。肺隔离症更常见于肺下叶,因此当在下叶发现实性肿块尤其是当病变靠近纵隔或反复发生下叶炎症,应警惕隔离肺的可能。血管造影,特别是三维 CTA 可以确定异常血管的起始位置、走行、粗细等,对手术有重要意义。本组 38 例患儿术前均行 CTA 检查,明确了异常动脉位置及直径,为术中探查提供了依据。

肺隔离症的最终治疗是手术切除,传统开胸手术存在切口大、创伤大以及术后并发症多等弊端,近年来胸腔镜技术被越来越多地应用于肺隔离症切除术中[7-11]。手术的关键和难点在于寻找和处理异常血管,它可能增厚或更脆弱,并且常常被反复感染引起的炎症改变所掩盖,密集的粘连会使胸腔镜切割困难,增生的炎性血管会使手术区域变得模糊。胸腔镜被认为

是无肺门部粘连或解剖改变的简单隔离肺的最佳选择,但当术前影像学不能很好确定异常动脉时,有时需要通过开胸手术来更好地处理最终的血管损伤[12]。本组患儿中1例找到2条异常分支,2例找到3条异常分支,因此对于多条异常分支的隔离肺在分离粘连时,应警惕异常血管的误伤而造成致命性大出血。我们认为胸腔镜手术对大多数胸膜粘连的患者仍然可行,除非粘连太密,无法通过胸腔镜进行剥离。如果术中有任何困难,最好立即中转开胸。

本研究比较开胸手术与胸腔镜手术治疗儿童先天性肺隔离症的临床疗效。胸腔镜组患儿胸腔引流时间、术后呼吸机支持时间、术后住院天数及CCU滞留时间均短于开胸组,两组间比较差异有统计学意义($P<0.05$),考虑可能的原因如下:①胸腔镜具有放大功能,电凝钩在分离组织过程中对于细小血管的处理更彻底,减少了术中出血,故胸腔引流时间较短;②胸腔镜手术切口小、疼痛轻、术后恢复快;③胸腔镜未使用肋骨牵开器,避免了肋骨骨折、断端出血等,因此胸腔镜治疗肺隔离症具有出血少、恢复快等优点。胸腔镜组手术时间较开胸组长,差异有统计学意义($P<0.05$),考虑可能原因如下:①部分患儿胸腔粘连严重,胸腔镜下处理异常动脉困难,导致手术时间延长;②6月龄以下婴儿,由于建立单肺通气麻醉的难度及本身胸腔空间狭小,胸腔镜下可操作的空间不充裕,增加了操作的难度;③胸腔镜手术存在学习曲线。有研究报道介入栓塞技术用于肺隔离症的治疗,应用介入栓塞治疗无症状新生儿及儿童肺隔离症,长期随访大部分隔离肺消失,无严重的合并症[13]。但长期反复感染的肺隔离症患者,介入治疗效果不佳,易诱发或加重隔离肺的感染,因此介入治疗的应用要严格把握适应证。

综上所述,胸腔镜手术与开胸手术均能有效治疗儿童先天性肺隔离症。与开胸手术相比,胸腔镜创伤小、恢复快、并发症更少;但施术者存在学习曲线,手术的关键是处理异常血管。

参考文献:

[1] VAN RAEMDONCK D, DE BOECK K, DEVLIEGER H, *et al*. Pulmonary sequestration: a comparison between pediatric and adult patients[J]. Eur J Cardio-Thorac Surg, 2001, 19(4): 388-395. DOI: 10.1016/S1010-7940(01)00603-0.

[2] LIU C, PU Q, MA L, *et al*. Video-assisted thoracic surgery for pulmonary sequestration compared with posterolateral thoracotomy[J]. J Thorac Cardiovasc Surg, 2013, 146(3): 557-561. DOI: 10.1016/j.jtcvs.2013.04.027.

[3] MORIKAWA H, TANAKA T, HAMAJI M, *et al*. A case of aspergillosis associated with intralobar pulmonary sequestration[J]. Asian Cardiovasc Thorac Ann, 2011, 19(1): 66-68. DOI: 10.1177/0218492310390684.

[4] RAGUSA M, VANNUCCI J, LENTI M, *et al*. Pulmonary sequestration supplied by giant aneurysmal aortic branch[J]. Ann Thorac Surg, 2010, 89(2): e7-e8. DOI: 10.1016/j.athoracsur.2009.10.064.

[5] ZYLAK C J, EYLER W R, SPIZARNY D L, *et al*. Developmental lung anomalies in the adult: radiologic-pathologic correlation[J]. Radio Graphics, 2002, 22(suppl_1): S25-S43. DOI: 10.1148/radiographics.22.suppl_1.g02oc26s25.

[6] ROTHENBERG S S. First decade's experience with thoracoscopic lobectomy in infants and children[J]. J Pediatr Surg, 2008, 43(1): 40-44; discussion 45. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2007.09.015.

[7] GONZALEZ D, GARCIA J, FIEIRA E, *et al*. Video-assisted thoracoscopic lobectomy in the treatment of intralobar pulmonary sequestration[J]. Interact Cardiovasc Thorac Surg, 2011, 12(1): 77-79. DOI: 10.1510/icvts.2010.254177.

[8] GEZER S, TAŞTEPE İ, SIRMALI M, *et al*. Pulmonary sequestration: a single-institutional series composed of 27 cases[J]. J Thorac Cardiovasc Surg, 2007, 133(4): 955-959. DOI: 10.1016/j.jtcvs.2006.11.003.

[9] WANG L, LIU D, LU J, *et al*. The feasibility and advantage of uniportal video-assisted thoracoscopic surgery (VATS) in pulmonary lobectomy[J]. BMC Cancer, 2017, 17(1): 75. DOI: 10.1186/s12885-017-3069-z.

[10] SIHOE A D L, LUO Q G, SHAO G Q, *et al*. Uniportal thoracoscopic lobectomy for intralobar pulmonary sequestration[J]. J Cardiothorac Surg, 2016, 11: 27. DOI: 10.1186/s13019-016-0425-z.

[11] LANGER J C, WINTHROP A L, DON S, *et al*. Video-assisted thoracoscopic resection of pulmonary nodules: preoperative localization with India ink[J]. Pediatr Endosurg Innov Tech, 1999, 3(4): 187-190. DOI: 10.1089/pei.1999.3.187.

[12] WANG L M, CAO J L, HU J. Video-assisted thoracic surgery for pulmonary sequestration: a safe alternative procedure[J]. J Thorac Dis, 2016, 8(1): 31-36. DOI: 10.3978/j.issn.2072-1439.2016.01.25.

[13] ZHANG S X, WANG H D, YANG K, *et al*. Retrospective review of the diagnosis and treatment of pulmonary sequestration in 28 patients: surgery or endovascular techniques?[J]. J Thorac Dis, 2017, 9(12): 5153-5160. DOI: 10.21037/jtd.2017.10.145.

(**收稿**:2020-08-05;**修回**:2020-09-10)

(编辑 栾 嘉)