论文

根袖重建术治疗包含有神经根的骶管囊肿

孙建军^{①*}, 王振宇^{①*}, 李振东^①, 邬海博^②, 颜如玉^③, 郑梅^④, 常青^⑤,
LIU Isabelle Yisha^⑥

① 北京大学第三医院, 神经外科, 北京 100191;

② 北京大学第三医院, 放射科, 北京 100191;

③ 北京大学第三医院, 普外科, 北京 100191;

④ 北京大学第三医院, 神经科, 北京 100191;

⑤ 北京大学第三医院, 病理科, 北京 100191;

⑥ Department of Head & Neck Surgery, UCLA Medical Center, Los Angeles 90095, USA

* 联系人, E-mail: sunjj2008@gmail.com; wzyu502@hotmail.com

收稿日期: 2013-06-15; 接受日期: 2013-07-22

国家自然科学基金(批准号: 81200969)和教育部新教师基金(批准号: 200800011035)资助项目

摘要 分析了包含有神经根的骶管囊肿的临床特性, 评估了根袖重建术的治疗效果. 根据术中显微镜下所见, 判明神经根和骶管囊肿的关系(确定神经根在囊肿内), 切除多余的囊肿壁, 重叠缝合重建神经根袖. 用改良的 IJOA 评分来评价患者手术前后的神经功能状况. 38 例患者入组本研究, 平均年龄(41.4±15.57)岁, 术前 IJOA 评分为 18.8±1.32, 术后 IJOA 评分为 19.6±0.65, 手术前后 IJOA 分值差异显著($t=-3.77$, $P=0.001$), 有统计学意义, 术后神经功能状况得以显著改善. 感觉功能改善最明显($z=-2.86$, $P=0.004$), 其次是二便功能($z=-2.31$, $P=0.02$).

关键词骶管
硬脊膜囊肿
重建神经袖
脊神经根
临床效果

骶管硬膜外囊肿特指位于骶管内硬脊膜外的囊肿(sacral extradural spinal meningeal cysts, SESMCs). 往往是在因外伤或体检等原因进行腰椎磁共振(magnetic resonance imaging, MRI)检查时偶然发现, 大多无症状. 根据 Nabors 等人^[1]对骶管囊肿的分类, 骶管硬膜外囊肿可分为囊肿内包含有神经根(spinal nerve root fibers, SNRFs)和不包含神经根两种类型. 囊肿内包含有神经根的骶管硬膜外囊肿也就是 Tarlov 囊肿, 源于后根神经节的神经鞘、神经周和神经内脑脊液(cerebrospinal fluid, CSF)积聚, 促使根袖扩张而成^[2].

神经根袖的某些发育性薄弱点是含有神经根的骶管硬膜外囊肿形成的生理学基础^[3]. 囊肿不断扩增的生物学机制是人类直立行走时高的静水压和球阀效应^[3~5]. 神经根周扩张的根袖构成了囊肿壁, 造成神经根纤维周围内环境的变化, 与轴浆运输的中断机制类似^[6], 改变的内环境导致神经纤维功能障碍. 这种类型的神经功能障碍不同于膨大的囊肿压迫毗邻的骨质和其他神经根引起的功能障碍. 有必要开展通过外科手术干预, 从而恢复囊肿内神经纤维内环境的临床研究.

虽然诊断技术在不断提高, 针对骶管硬膜外囊

引用格式: 孙建军, 王振宇, 李振东, 等. 根袖重建术治疗包含有神经根的骶管囊肿. 中国科学: 生命科学, 2013, 43: 947~952, doi: 10.1360/052013-127

英文版见: Sun J J, Wang Z Y, Li Z D, et al. Reconstruction of nerve root sheaths for sacral extradural spinal meningeal cysts with spinal nerve root fibers. Sci China Life Sci, 2013, 56: 1007~1013, doi: 10.1007/s11427-013-4536-7

肿的最佳治疗方法仍存在很大的争议。保守治疗方法, 包括腰穿脑脊液引流、CT(computed tomography)引导下经皮穿刺囊肿抽吸以及注射或不注射纤维凝胶, 都不能杜绝症状性囊肿复发^[7]。骶管硬膜外囊肿患者出现症状后, 手术治疗的目的是缓解神经根刺激和压迫症状, 以及终止骨破坏。症状性骶管囊肿的手术方法包括囊肿-腹腔分流、单纯椎板减压、部分囊肿切除囊颈结扎(切断或不切断所包含的神经根)、囊肿壁切除、囊肿重建和双极灼缩囊肿壁^[4]。针对症状性骶管硬膜外囊肿的治疗意见虽然不统一, 但前人的研究基本赞成外科手术干预, 认为能获得最好的远期预后^[1,2,7]。

有关骶管囊肿治疗的报道大多为个例或少于20例的有限病例报道^[2,4,7-11]。很难说明骶管硬膜外囊肿的有效治疗方法。本研究通过诊断、治疗含有神经根的骶管硬膜外囊肿, 并随访观察其临床疗效, 是相对大型的前瞻性临床队列研究, 以期找到有效治疗这一少见病的方法。

不论如何命名和分类, Tarlov 囊肿的明确特点是囊肿壁内或囊肿内包含有神经根。CT 和 MRI 是有效的诊断手段, 但诊断还需根据术中所见, 显微镜下观察发现囊肿内包含有神经根后最终明确^[3]。本研究旨在调查 38 例包含有神经根的骶管硬膜外囊肿患者的临床表现、外科手术和临床效果。

1 材料与方法

本队列研究需应用患者的临床资料, 已获得北京大学第三医院伦理学委员会的许可, 所有临床资料的获得和使用、采取手术治疗和进入本研究都有患者和家属签署的知情同意书。

1.1 患者资料

患者为 2009 年 6 月~2012 年 10 月期间我院收治的 38 例接受根袖重建手术、含有神经根的骶管硬膜外囊肿患者。收集患者性别和年龄等基本人口学资料、临床和放射学资料, 所有患者手术前后常规行包括 MRI 在内的神经影像学检查。患者从首次出现症状到就诊这一时间段定义为发病病程, 以“月”为单位计数。

1.2 入组和排除标准

患者进入本研究标准如下: (i) 放射学资料显示有骶管硬膜外囊肿; (ii) 神经性症状和骶管硬膜外囊肿相符合; (iii) 术中显微镜下确认囊肿内含有神经根。如果患者的临床症状不能和同时伴发的腰椎管狭窄或腰椎间盘突出症鉴别开, 将被剔出本研究。含有神经根的骶管硬膜外囊肿包括神经旁和神经周两种亚型。患者的临床资料由一指定医生双盲性收集, 该医生不清楚囊肿内是否含有神经根。所有资料都用适当的统计学方法进行分析。

1.3 临床表现

将患者临床表现细化为首发症状、首发症状累及部位和自然病程 3 项。首发症状分为 6 类: 二便/性功能障碍、下肢无力、下肢麻木、疼痛、坠胀感以及前述症状的复合类型。首发症状累及部位分为 6 类: 骶尾部、会阴和外生殖器、下腰部、臀部、下肢(大、小腿)以及多个部位的综合。

神经系统体征细化为感觉障碍、肌力下降和二便功能障碍 3 项。二便功能状况分 4 级, 1 级: 正常; 2 级: 尿频或便秘; 3 级: 排尿或排便困难; 4 级: 尿便失禁。IJOA 评分系统(improved JOA grading, 改良 JOA)评价, 在原有 JOA 评分基础上, 加大便功能评定(失禁 0 分, 排便无力等中度异常 1 分, 便秘等轻度异常 2 分, 正常 3 分), 总分 20 分, 对患者感觉、运动和二便功能进行计分评定^[10]。

1.4 外科手术

骶管硬膜外囊肿的手术按标准程序进行, 切口自 L5 到 S3 水平, 根据囊肿的部位和累及范围暴露所需的骶管椎板。以椎板咬骨钳小心谨慎地做椎板减压, 尽量保证囊肿的完整性。囊肿暴露后, 导入手术显微镜。辨认硬膜囊末端、游离和囊肿的粘连。将每一囊肿和周边的神经结构分离开, 确定囊肿起源以及打开囊肿后确认囊肿内是否有神经根(图 1)。确定囊肿内含有神经根后, 切除部分囊肿壁, 重叠缝合其余囊肿壁以防止来自蛛网膜下腔的脑脊液漏, 并重建神经根袖。重建神经根袖后, 对仍呈微膨形态的袖套, 以双极电凝烧灼使之皱缩, 建出神经根袖的正常外径和形态。常规的术中电生理监测有助于区别神经根和其他结缔组织, 同时电刺激排除运动神经根的存在, 以局部肌肉瓣加固闭合伤口。

图 1 两种亚型的含有神经根的骶管硬膜外囊肿

1.5 囊肿特征

根据术中显微镜下实际观察到的囊肿数目计数, 测量囊肿最大径, 辨认囊肿亚型. 如患者罹患多发骶管囊肿, 以最大囊肿的实际情况记录囊肿最大径、囊肿类型和所采取术式.

1.6 术后管理和评估

术后所有患者都要求俯卧在床几天, 具体时间长短根据术中情况而定, 和发生脑脊液漏的可能性成正比. 评价术后伤口愈合情况分为: (i) 愈合好; (ii) 水泡红肿等造成伤口延迟愈合; (iii) 伤口液化、脑脊液漏、裂开等需再缝合或再手术. 术后两周常规行 MRI 复查, 由一位不了解术前具体诊断分型的神经影像医生双盲性评价术后影像学情况, 分为: (i) 囊肿消失; (ii) 残留小囊肿; (iii) 囊肿消失术腔残留积液. 术后 3 个月再以 IJOA 评分评估患者神经功能状况.

1.7 随访

以电话或门诊随诊的方式, 追踪式随访患者至 2013 年 1 月, 根据患者的实际描述将预后分为好和差两种.

1.8 统计学分析

数据评价用 SPSS17.0 (SPSS, Chicago, USA) 统计学软件包分析, 数据以 $\bar{x} \pm SD$ 的形式标注, $P < 0.05$ 认

为有统计学意义. 参数资料应用 t 检验, 非参数资料应用 Mann-Whitney 检验.

2 结果

2.1 一般资料

38 例患者进入本研究, 男 14 例 (36.8%), 女 24 例 (63.2%). 年龄 13~70 岁, 平均年龄 (41.4 ± 15.57) 岁. 平均住院天数 (14.5 ± 3.84) 天.

2.2 临床表现

首发症状累及多个部位 18 例 (47.4%), 下腰部 10 例 (26.3%), 下肢 (大、小腿) 5 例 (13.2%), 骶尾部 4 例 (10.5%), 臀部 1 例 (2.6%). 首发症状为疼痛 31 例 (81.6%), 多个症状的复合类型 5 例 (13.2%), 麻木和坠胀感 1 例 (2.6%). 自然病程 (34.2 ± 50.28) 月.

2.3 神经功能状况

二便分级为 1 级 28 例, 2 级 6 例, 3 级 3 例, 4 级 1 例. 术前 IJOA 评分 18.8 ± 1.32 , 术后 IJOA 评分 19.6 ± 0.65 , 差异有统计学意义 ($t = -3.77$, $P = 0.001$) (图 2). 术后神经功能状况较术前明显改善, 改善最明显的是感觉障碍 ($z = -2.86$, $P = 0.004$), 其次是二便功能障碍 ($z = -2.31$, $P = 0.02$), 有统计学意义. 10 例术前有二便功能障碍者, 4 例术后仍有二便功能障碍, 3 例轻度功能障碍, 1 例重度功能障碍.

2.4 骶管囊肿特征和相关性分析

38 例患者中, 神经旁型囊肿 11 例, 神经周型囊肿 27 例. 囊肿最大径 1.5~9 cm, 平均 (3.2 ± 1.54) cm. 1 个囊肿 17 例, 2 个囊肿 13 例, 3 个囊肿 8 例. 囊肿平均为 (1.8 ± 0.87) 个.

2.5 术后状况

术后俯卧位时长 (5.5 ± 3.19) 天. 术后伤口愈合好 31 例, 水泡或红肿致伤口延迟愈合 2 例, 伤口漏液、裂开等需再次缝合或清创手术者 5 例. 术后影像显示, 囊肿消失 17 例, 残留小囊肿 6 例, 术腔残留积液 15 例.

2.6 随访和预后

平均随访时间 (21.0 ± 12.54) 月 (3~43 个月). 16 例

图2 根袖重建术治疗含有神经根的骶管硬膜外囊肿病例

38岁既往体健的女性患者,因“下腰部、骶尾和双下肢放射痛40天”就诊,卧床休息和强力镇痛药不能有效缓解疼痛,且疼痛在行走或久站时加重。术前UOA评分19分。MRI显示骶管内多发小囊肿、串珠样的囊肿在T1加权相上显示为低信号(A),T2加权相上显示为较高信号(F)。轴位相显示出两个毗邻的囊肿(D,图中箭头所示为囊肿内包含的神经根),另一轴位相显示同时存在的3个囊肿(E)。手术治疗两周后,MRI的T1(B)和T2(G)加权相显示囊肿存在,在轴位相上可见重建根袖后的神经根(I,箭头所示为重建根袖后的两个神经根),术后1年复查,MRI的T1加权相(C)和T2加权相(H),以及轴位相(J)未见囊肿复发,患者术前的放射痛完全缓解。

术前感觉功能障碍者, 6 例术后仍有感觉障碍, 5 例感觉障碍同术前, 1 例感觉障碍较术前加重. 11 例术前下肢肌力下降者, 10 例术后改善, 1 例同术前. 随访发现 37 例预后好, 1 例预后差. 1 例患者因术后严重的二便功能障碍、恶化的感觉障碍和下肢肌力下降而预后差.

3 讨论

直立行走行为是人类特有行为、人类文明的基石. 直立位的硬膜囊末端——终池内的静水压是最高的. 神经根或外终丝穿出硬膜囊末端局部的硬膜或鞘膜如有发育性薄弱, 长期的站立或行走, 在高位静水压的持久作用下, 薄弱的囊壁就会向外膨出形成囊肿, 这和脑动脉瘤形成的血流动力学原理是相似的. 简言之, 直立行走是骶管硬膜外囊肿形成的行为学基础, 一些学者认为脑脊液的静水压是囊肿形成的启动因素^[1,2,4,7-13].

骶管硬膜外囊肿源于瘘口的球阀效应, 神经根袖局部的发育性异常、结缔组织结构紊乱, 形成单向阀门结构. 直立行走或收缩压的作用下, 局部静水压升高, 脑脊液渗入囊肿; 静卧或舒张压作用下, 静水压虽下降, 但囊肿液回流时启动囊肿内的粘膜封闭瘘口, 囊肿液无法通过瘘口返流回正常循环. 单向阀门形成, 球阀效应的作用下, 囊肿渐行增大^[14]. 球阀效应是骶管硬膜外囊肿形成和进展的一般机制.

在骶管硬膜外囊肿发展、增大的过程中, 毗邻神经根受到刺激或发生移位, 就会出现相应的症状. 多以疼痛起病, 且部位不恒定, 大多是多个部位的复合类型, 这和骶管解剖结构有关. 囊肿大多起源于 L5~S1 神经根, 骶管的后壁和侧壁相对薄弱, 随着囊肿增大, 囊肿趋向于向后、下和两侧延展. 这种情况下, 首先受累的应是一些感觉神经根, 其次是司二便功能的神经根, 最后才是运动神经根. 含有神经根的骶管硬膜外囊肿渐行增大, 临床症状也逐渐多样化. 随着囊肿增大, 受累的感觉根牵张变形, 毗邻的神经根受压, 逐渐出现多个部位的疼痛、麻木等感觉障碍^[2,15].

含有神经根的骶管硬膜外囊肿常多发, 并较小, 可分为神经旁和神经周两种亚型, 囊肿在神经根外延展, 也会挤压毗邻的神经根, 患者较早出现胀痛或刺痛. 甚至在囊肿很小时, 因早期出现的不适症状,

囊肿会被早期发现.

其他学者报道认为, 含有神经根的骶管硬膜外囊肿可引起骶部疼痛、骶骨骨折、尾骨痛、下腰痛、间歇性跛行和腰骶放射痛等. 患者的主诉有下腰痛、腿疼和诸如感觉迟钝或麻木等感觉障碍, 特殊的放射痛可能系神经根扭曲或受压所致^[2,15]. 一般情况下, 疼痛是间歇性的, 每于久站、行走和咳嗽时加重. 神经周囊肿最初多累及骶后或尾部的感觉神经根^[16], 逐渐发展, 最终会压迫性损害运动和二便神经.

无症状骶管囊肿不需要手术干预的观点已成共识^[1-5,7-19]. 如罹患囊肿的患者出现症状, 手术干预的目的是缓解神经刺激和压迫, 以及终止骨破坏. 含有神经根的骶管硬膜外囊肿即使很小, 一些患者也有可能因神经刺激出现急性症状. 卧床或强力镇痛仍不能缓解某些骶管囊肿引发的剧烈、不停歇、刺激性或放射性疼痛, 尽快地手术干预是完全必要的. 无法缓解的神经刺激症状可能系大量脑脊液在短期内快速进入囊肿内, 显著提高了囊肿内静水压, 剧烈、不停歇地刺激着外周神经根所致. 囊肿开放, 切除部分囊肿壁, 神经根的压迫和静水压带来的脉冲式刺激作用得以缓解, 感觉和二便功能障碍也将有所改善. 所以, 本研究强调, 针对症状性骶管囊肿及时手术干预是非常必要的, 术后大部分患者神经功能障碍得以有效改善, 最明显的是感觉、其次是二便功能.

迄今为止, 针对骶管硬膜外囊肿的最佳手术方式仍未达成共识. Jung 等人^[18]认为硬膜外阻滞等保守治疗措施对含有神经根的骶管囊肿是有益的. Patel 等人^[20]提倡用经皮穿刺引流, 局部注入生物胶的方式治疗骶管硬膜外囊肿. 但 Voyadzis 等人^[5]考虑到有发生神经损害的风险, 反对经皮穿刺引流. 依本研究的经验而言, 将凝胶注入含有神经根的囊肿内, 固态的凝胶块必将黏附并牵坠受累的神根, 这样神经刺激症状不可能缓解, 甚至有恶化加重的可能. 在显微镜下辨认真实囊肿内不含有神经根, 作为备用措施, 可以考虑用纤维凝胶封闭瘘口. Xu 等人^[21]认为, 显微手术穿刺囊肿并行重叠缝合可获较好的临床效果.

本研究认为, 对于含有神经根的骶管囊肿手术应切除冗余的囊肿壁, 重叠缝合加固瘘口防止脑脊液漏, 重建神经根袖. 重建神经根袖可复原脊神经根的正常生理内环境, 重叠缝合丰富的囊肿壁以加固先天性薄弱, 恢复受累神经根袖的正常外径. 以下两项举措是为了中断囊肿扩增的生物学机制, (i) 术

中扩大瘘口外径使之尽可能和重建的神经根袖外径一致, 变单向阀门为双向流动口; (ii) 为了克服直立行走时高的静水压效应, 术后早期应保持俯卧在床数日. 在改变含有神经根骶管硬膜外囊肿形成的生理学基础和生物学机制的情况下, 术后两周内, 将实现患者受累神经根功能的改善和恢复.

特别强调的是, 在显微镜下仔细查看, 找到所有可能的瘘口, 通过显微镜下精细的手术操作严密缝合、加固瘘口, 尽量避免术后脑脊液漏和囊肿复发的发生. 术中尽量找到所有的瘘口, 并予以缝扎或重叠加固; 缝扎或加固后, 抬高头位或过度换气, 确保没有残留瘘口存在. 即便采取了合理而恰当的手术方法, 术后残留小囊肿的情况仍不能完全杜绝. 以后的临床研究和实践中, 仍有很大空间改进手术技巧, 或

可找到一个更加合理的治疗方法. 骶管囊肿生长较长时间后, 囊肿逐渐变得巨大, 巨大囊肿意味着囊肿切除后遗留巨大的空腔, 相对薄弱的骶尾部肌肉和软组织却不能有效填满这一巨大空腔. 所以, 对于巨大骶管囊肿, 术后骶管空腔内积液残留也是难以避免的. 为了缩小骶管空腔内的积液残留, 术后床上俯卧数日是非常必要的. 俯卧位时终池内稳定的静水压可以降低液体外渗; 1 kg 干净沙袋在伤口处的适度压迫有助于使有限的肌肉和软组织填塞到骶管空腔内.

总之, 对于症状性含有神经根的骶管硬膜外囊肿, 手术治疗的目的是缓解神经根刺激和压迫以及终止骨破坏. 大部分患者骶管囊肿术后神经功能状况较术前明显改善, 最明显的是感觉, 其次是二便功能.

参考文献

- 1 Nabors M W, Pait T G, Byrd E B, et al. Updated assessment and current classification of spinal meningeal cysts. *J Neurosurg*, 1988, 68: 366-377
- 2 Tarlov I M. Spinal perineurial and meningeal cysts. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*, 1970, 33: 833-843
- 3 Cantore G, Bistazzoni S, Esposito V. Sacral Tarlov cyst: surgical treatment by clipping. *World Neurosurg*, 2013, 79: 381-389
- 4 Singh P K, Singh V K, Azam A, et al. Tarlov cyst and infertility. *J Spinal Cord Med*, 2009, 32: 191-197
- 5 Voyadzis J M, Bhargava P, Henderson F C. Tarlov cysts: a study of 10 cases with review of the literature. *J Neurosurg*, 2001, 95: 25-32
- 6 Lingor P, Koch J C, Tönges L, et al. Axonal degeneration as a therapeutic target in the CNS. *Cell Tissue Res*, 2012, 349: 289-311
- 7 Acosta F L Jr, Quinones-Hinojosa A, Schmidt M H, et al. Diagnosis and management of sacral Tarlov cysts. Case report and review of the literature. *Neurosurg Focus*, 2003, 15: E15
- 8 Park H J, Kim S, Lee S W, et al. Two cases of symptomatic perineural cysts (Tarlov cysts) in one family. A case report. *J Korean Neurosurg Soc*, 2008, 44: 174-177
- 9 Ju C, Shin H, Kim S W, et al. Sacral perineural cyst accompanying disc herniation. *J Korean Neurosurg Soc*, 2009, 45: 185-187
- 10 Peña E, Llanero M. Painful legs and moving toes syndrome associated with a sacral Tarlov cyst. *Parkinsonism Related Disord*, 2011, 17: 645-646
- 11 Fernandes C, Pinho R, Veloso R, et al. Tarlov cysts: an unusual case of perianal pain. *Tech Coloproctol*, 2012, 16: 319-320
- 12 Wang Z Y, Sun J J, Xie J C, et al. Comparative analysis on the diagnosis and treatments of multi-segment intramedullary spinal cord tumors between the different age groups. *Neurosurg Rev*, 2012, 35: 85-93
- 13 O'Rahilly R, Müller F, Meyer D B. The human vertebral column at the end of the embryonic period proper. The sacrococcygeal region. *J Anat*, 1990, 168: 95-111
- 14 Landers J, Seex K. Sacral perineural cysts: imaging and treatment options. *Br J Neurosurg*, 2002, 16: 182-185
- 15 Freidenstein J, Aldrete J A, Ness T. Minimally invasive interventional therapy for Tarlov cysts causing symptoms of interstitial cystitis. *Pain Physician*, 2012, 15: 141-146
- 16 Duja C M, Berna C, Kremer S, et al. Confusion after spine injury: cerebral fat embolism after traumatic rupture of a Tarlov cyst: case report. *BMC Emerg Med*, 2010, 10: 18
- 17 Slipman C W, Bhat A L, Bhagia S M, et al. Abdominal pain secondary to a sacral perineural cyst. *Spine J*, 2003, 3: 317-320
- 18 Jung K T, Lee H Y, Lim K J. Clinical experience of symptomatic sacral perineural cyst. *Korean J Pain*, 2012, 25: 191-194
- 19 Tanaka M, Nakahara S, Ito Y, et al. Surgical results of sacral perineural (Tarlov) cysts. *Acta Med Okayama*, 2006, 60: 65-70
- 20 Patel M R, Louie W, Rachlin J. Percutaneous fibrin glue therapy of meningeal cysts of the sacral spine. *Am J Roentgenol*, 1997, 168: 367-370
- 21 Xu J Q, Sun Y D, Huang X, et al. Management of symptomatic sacral perineural cysts. *PLoS ONE*, 2012, 7: e39958