

临床研究

DOI:10.13406/j.cnki.cyx.000665

小儿腰骶部隐性脊柱裂 MRI 表现及下肢功能障碍的关系研究

曾凡森¹, 吴 丽²

(1. 广州市妇女儿童医疗中心感染科, 广州 510115; 2. 郑州市儿童医院神经康复科, 郑州 450053)

【摘要】目的:研究小儿隐性脊柱裂(spina bifida occulta, SBO)的腰骶部核磁共振成像(magnetic resonance imaging, MRI)及下肢功能障碍表现,进行脊柱裂神经功能量表(Spina Bifida Neurological Scale, SBNS)评分,探讨小儿 SBO 腰骶部 MRI 表现及下肢功能障碍的关系。**方法:**对 106 例小儿腰骶部隐性脊柱裂及下肢功能障碍患儿行腰骶部 MRI,对每位患者按 SBNS 量表进行神经功能评分,分析小儿 SBO 腰骶部 MRI 表现及下肢功能障碍的关系。**结果:**腰骶部 MRI 表现简单性畸形时,下肢功能障碍以轻度运动功能障碍及足畸形为主,腰骶部 MRI 表现复杂性畸形时,下肢功能障碍以重度运动障碍及足畸形为主;腰骶部 MRI 表现简单性与复杂性畸形的 SBNS 评分均数比较有显著性差异($t=4.548, P=0.023$)。**结论:**MRI 在小儿 SBO 及脊髓畸形诊断中有重要的意义;小儿腰骶部 SBO 患者 SBNS 评分越低,下肢功能障碍越严重, MRI 表现越复杂合并脊髓畸形越多; SBNS 量表评分在 SBO 及下肢功能障碍中是比较有意义的评价方法。

【关键词】小儿;隐性脊柱裂;下肢功能障碍;MRI**【中图分类号】**R726**【文献标志码】**A**【收稿日期】**2015-03-04

Relationship between the lumbosacral MRI performance of spina bifida occulta in children and lower limb dysfunction

Zeng Fansen¹, Wu Li²

(1. Department of Infection Diseases, Guangzhou Women and Children Medical Center;

2. Neural Rehabilitation Department, Children's Hospital in Zhengzhou)

【Abstract】Objective: To analyze the lumbosacral magnetic resonance imaging (MRI) performance of spina bifida occulta (SBO) and lower extremity dysfunction in patients combined with spina bifida neurological scale score (SBNS), and to investigate the relationship between lumbosacral MRI performance of SBO and lower extremity dysfunction. **Methods:** The lumbosacral MRI was performed on 106 children with spina bifida occulta and lower extremity dysfunction. SBNS scale was used to evaluate the relationship between lumbosacral MRI performance of SBO and lower extremity dysfunction. **Results:** The lower limb dysfunction manifested as mild motor dysfunction and foot deformity according to simple lumbosacral MRI manifestation. The lower limb dysfunction manifested as severe motor dysfunction and foot deformity according to complex lumbosacral MRI manifestation. There were statistical differences in SBNS score between simple MRI manifestation and complex MRI manifestation ($t=4.548, P=0.023$). **Conclusion:** MRI is valuable in the diagnosis of the SBO and associated malformations. The more serious the lower extremity dysfunction, the lower the SBNS score; the more complex the MRI manifestation, the more serious the spinal cord deformity. SBNS scale is meaningful in the evaluation of SBO and lower limb dysfunction.

【Key words】children; spina bifida occulta; lower extremity dysfunction; magnetic resonance imaging

脊柱裂为躯干中线骨、间质、神经结构不融合或融合不全所致,常伴有脊膜膨出、脂肪瘤形成及

脊髓栓系等^[1]。目前国内外对其分类方法很多^[2-3],根据椎管内容物是否突出脊柱表面皮肤分为开放性脊柱裂和小儿隐性脊柱裂(spina bifida occulta, SBO)。SBO 是指表面有皮肤覆盖的,无暴露的神经组织及囊状结构的神经管闭合不全及部分相关中胚层结构异常^[4-5]。SBO 发生率在不同的文献报道中差异较

作者介绍:曾凡森, Email: zfsuuli@126.com,

研究方向:重症手足口病的康复。

通信作者:吴 丽, Email: 13838387208@163.com。

优先出版: <http://www.cnki.net/kcms/detail/50.1046.r.20150617.2235.005.html>
(2015-06-17)

大,国外一般认为发生率约占总人口的 17%^[6],我国报道约占总人口的 37.7%^[3],但有关 SBO 及下肢功能障碍的发生率在所查文献中未见报道。SBO 常累及 L₅~S₂^[2,7],病变部位皮肤多有皮肤隐窝、包块、色素沉着、毛发等异常现象。SBO 及下肢功能障碍的患儿早期症状不明显,在临床上容易漏诊或误诊为脑性瘫痪,随着年龄增长,患儿的功能障碍越来越明显,甚至残疾^[8],给家庭及社会带来巨大负担^[9]。目前,对 SBO 研究较多的是 SBO 和遗尿的关系及诊断^[10-11],而对腰骶部 SBO 核磁共振成像(magnetic resonance imaging, MRI)的表现及下肢功能障碍关系方面的研究较少。本研究通过脊柱裂神经功能量表(spina bifida neurological scale, SBNS)评分^[12]来探讨 106 例小儿 SBO 腰骶部 MRI 表现及下肢功能障碍的关系,以利于为小儿 SBO 及下肢功能障碍进行早期诊断提供客观依据,以便早期治疗和康复,现报告如下。

1 资料与方法

1.1 临床资料

收集郑州市儿童医院 2008 年 7 月至 2009 年 12 月收治的隐性脊柱裂及下肢功能障碍患者 106 例,男 58 例,女 48 例。年龄 3 d~6 岁,按年龄分为新生儿组 4 例、婴儿组 71 例、幼儿组 24 例、学龄前儿组 7 例。其中腰骶部皮肤表现见表 1,下肢功能障碍见表 2,足畸形表现各类别见表 3。

表 1 SBO 患儿腰骶部皮肤表现

Tab.1 Skin manifestations of lumbosacral portion in SBO children (person-time and proportion)

腰骶部皮肤表现	例数 (n)	占总腰骶部皮肤表现人次的百分比 (%)
包块	6	4.1
色素沉着	27	18.9
毛发	16	11.3
隐窝	94	65.7
总计	143	100.0

表 2 SBO 患儿下肢功能障碍的症状及体征

Tab.2 Symptoms and signs of SBO children with lower limb dysfunction

症状体征	例数 (n)	占下肢功能障碍总表现人次的百分比 (%)
足部畸形	86	58.1
运动功能障碍	20	13.5
皮纹不对称	33	22.3
长短、粗细不等	9	6.1
总计 (人次)	148	100.0

表 3 SBO 患儿足畸形表现分类及百分比

Tab.3 Classification and percentage of SBO children with foot deformity

足畸形表现	例数 (n)	占足畸形的百分比 (%)
足内翻	73	84.9
足外翻	5	5.8
摇椅足	2	2.3
扁平足	4	4.7
弓形足	2	2.3
合计	86	100.0

1.2 入选标准

所有研究对象均通过 MRI 诊断为腰骶部隐性脊柱裂,同时有下肢运动功能障碍、足部畸形及下肢皮纹不对称、下肢不等长不等粗等表现。隐性脊柱裂及下肢运动功能障碍患者,并行心电图和相关生化检查,排除外周神经炎、肌病等疾病。

隐性脊柱裂及下肢长短、粗细不同、皮纹不对称患者,并行髋关节 X 线片,排除髋关节脱位。隐性脊柱裂伴足畸形及运动功能障碍患者,并行头颅 CT 等检查,依据脑性瘫痪诊断标准排除脑性瘫痪。入选研究对象均征得家长同意。

1.3 MRI 检查及分类

本组患者均进行腰骶部 MRI 检查, SBO 腰骶部 MRI 分类标准以 Brunberg 的分类方法^[13-14]为基础,结合本组病例,将观察到的腰骶部 SBO MRI 表现分为常见的几种类型包括:单纯椎弓、椎板缺如;骶管脂肪沉积;硬膜下脂肪瘤 (intradural lipoma);脂肪瘤往往呈条状,紧贴脊髓后方,硬膜囊完整;脊髓栓系综合征 (tethered cord syndrome, TCS);由于各种先天或后天原因导致牵拉脊髓圆锥,或使圆锥低位并产生一系列神经功能障碍的综合征^[15-16];脊髓纵裂 (split cord malformation, SC);脊髓中间有骨性或纤维分隔,横轴位可以看到双脊髓;皮毛窦 (dermal sinus);有窦道自脊髓由椎裂与皮肤沟通;脊髓空洞,多由于胚胎早期发育异常所致的神经管未闭合。

1.4 神经功能评分

应用 SBNS 对各组别中每位患者分 3 项进行神经功能评分,运动功能按照反射分 4 级计 4 分;肌力 6 级分法,计 6 分;大小便分 5 级计 5 分^[17]。对隐性脊柱裂患儿各类型在各年龄段的反射、运动及尿便功能进行分类评分,计总分后在患儿各年龄段中对各临床类型之间进行比较。

1.5 腰骶部 MRI 表现及运动功能障碍、足畸形的 SBNS 评分

本研究病例将 SBO 腰骶部 MRI 表现分为简单性畸形和复杂性畸形。简单性畸形包括:单纯椎弓、椎板缺如,骶管脂肪沉积;腰骶部 MRI 表现复杂性畸形包括:脊髓栓系、硬膜下脂肪瘤、脊髓纵裂、皮毛窦、脊髓空洞。将本病例根据运动功能障碍及足畸形的严重性分为:轻度下肢运动障碍及足畸形;包括单纯的各类足畸形。重度下肢运动障碍及足畸形;足畸形伴运动功能障碍或(和)下肢皮纹不对称、长短粗细不等;

运动功能障碍伴下肢皮纹不对称、长短粗细不等。

1.6 统计学处理

应用 SPSS15.0 软件, 计量资料以均数 $\pm$ 标准差 ($\bar{x} \pm s$) 表示, 腰骶部 MRI 表现在各年龄组中的 SBNS 评分采用方差分析, 两两比较采用 LSD- t 检验, 腰骶部 MRI 表现简单性与复杂性畸形的 SBNS 评分均数比较采用 t 检验, 检验水准 $\alpha=0.05$ 。

2 结 果

2.1 SBO 患儿腰骶部 MRI 表现

SBO 患儿腰骶部 MRI 各类别表现, 见表 4。

2.2 神经功能评分

新生儿尿便功能计 5 分; 婴儿膀胱 B 超无异常计 5 分, 容积增多或有残余尿计 4 分; SBO 患儿 106 例腰骶部 MRI 表现在各年龄组中的 SBNS 评分, 其中 MRI 表现脊髓栓系: 新生儿组与学龄前组, 婴儿组与学龄前组差异均有统计学意义 ($LSD-t=4.042, 4.312, P$ 均 <0.05); 骶管脂肪沉积: 新生儿组与学龄前组, 婴儿组与学龄前组比较差异有统计学意义 ($LSD-t=1.968, 2.812, P$ 均 <0.05); 硬膜下脂肪瘤、脊髓纵裂、皮毛窦、脊髓空洞的婴儿组与学龄前组比较, 差异有统计学意义 ($LSD-t=4.762, 4.156, 3.392, 4.455, P$ 均 <0.05 检验)。见表 5。

表 4 SBO 患儿腰骶部 MRI 各类别表现

Tab.4 MRI types of performance of lumbosacral portion in SBO children

腰骶部 MRI 表现	例数 (n)	占腰骶部 MRI 表现总人次比例 (%)
骶管脂肪沉积	69	48.6
单纯椎弓、椎板缺如	27	19.0
脊髓栓系综合征	10	7.1
硬膜下脂肪瘤	14	9.9
脊髓纵裂	9	6.3
皮毛窦	7	4.9
脊髓空洞	6	4.2
总计	142	100.0

表 5 SBO 患儿 106 例腰骶部 MRI 表现在各年龄组中的 SBNS 评分比较 ($\bar{x} \pm s$)

Tab.5 Comparison of SBNS score of MRI performance in lumbosacral portion in all age groups of ($\bar{x} \pm s$)

腰骶部 MRI 表现	新生儿组	婴儿组	幼儿组	学龄前组	F 值	P 值
脊髓栓系	10.4 $\pm$ 1.5	10.3 $\pm$ 1.8	8.4 $\pm$ 1.4	5.1 $\pm$ 1.3	12.650	0.016
单纯椎弓、椎板缺如	—	13.0 $\pm$ 1.3	12.4 $\pm$ 1.5	11.3 $\pm$ 2.0	5.430	0.071
骶管脂肪沉积	13.2 $\pm$ 0.6	12.4 $\pm$ 2.2	11.3 $\pm$ 2.1	9.2 $\pm$ 2.2	10.210	0.029
硬膜下脂肪瘤	—	12.8 $\pm$ 1.5	10.7 $\pm$ 2.5	7.0 $\pm$ 1.8	11.860	0.018
脊髓纵裂	—	13.0 $\pm$ 1.5	10.4 $\pm$ 2.5	7.1 $\pm$ 2.0	14.230	0.015
皮毛窦	—	13.2 $\pm$ 2.0	11.0 $\pm$ 2.4	7.3 $\pm$ 1.7	13.890	0.014
脊髓空洞	—	12.5 $\pm$ 1.2	9.2 $\pm$ 2.3	6.2 $\pm$ 1.6	15.310	0.012

2.3 腰骶部 MRI 表现及运动功能障碍、足畸形的 SBNS 评分比较

腰骶部 MRI 表现简单性畸形时, 下肢功能障碍以轻度运动功能障碍及足畸形为主; 腰骶部 MRI 表现复杂性畸形时, 下肢功能障碍以重度运动障碍及足畸形为主。SBO 患儿腰骶部 MRI 表现简单畸形 (68 例) 及复杂畸形 (38 例) 的 SBNS 评分均数分别为 (11.5 ± 1.6) 分、(9.3 ± 1.3) 分, 2 组比较有统计学差异 ($t=4.548, P=0.023$)。

3 讨 论

小儿 SBO 属于先天性疾病, 与神经管的胚胎异常发育密切相关^[18], 各种发育异常对脊髓形成牵拉从而引起下肢运动功能障碍、足部畸形等, 近年来随着研究不断深入, 人们越来越重视 SBO 相关性疾病的病理变化及临床表现。研究发现 MRI 是 SBO 患儿无创性诊断的重要工具, 通过信号的变化, 可对各种类型的 SBO 做出定性诊断^[19]。

本研究结果可以看出 MRI 诊断 SBO 及脊髓病变的价值, 可以清楚地诊断椎弓、椎板缺如, 骶管脂肪沉积及脊髓栓系、硬膜下脂肪瘤、脊髓纵裂等脊髓畸形。临床上发现 SBO 患儿临床症状较轻, 病理改变不明显, 容易漏诊, 从而导致很大的危险性, 对此类患儿需行腰椎手术、腰椎穿刺或腰麻麻醉^[20-21]; 因此, 如发现 SBO 的相关临床表现如皮肤隐窝或包块等线索, 应做 MRI 检查, 明确诊断, 以确保患者得到正确处理。在临床上, 腰骶部有包块或 (和) 毛发的易考虑脊髓问题, 但腰骶部仅有隐窝时, 往往不能引起广大医务人员的重视, 忽视可能存在的脊髓问题。SBO 及下肢功能障碍的治疗有别于脑性瘫痪、外周神经炎等疾病的治疗, 若发现有足畸形时不能简单的仅仅进行石膏固定或配带矫形器, 首先需要寻找可能的病因, 以免误诊耽误治疗。

本研究中 SBO 患儿腰骶部 MRI 表现为椎板椎弓缺如和(或)骶管脂肪沉积而无脊髓病变,但伴有腰软、下肢运动功能障碍、足畸形、尿频、遗尿、便秘等症状,可能与脊髓运动神经元存在异常、数目减少,运动神经元分布异常有关。研究发现部分脊髓栓系综合征患儿经手术治疗后效果不佳可能与神经元存在或分布异常有关^[2]。本研究中可以看出 SBNS 量表评分的高低很好地反映了下肢功能障碍的程度,SBO 患儿腰骶部 MRI 表现与 SBNS 量表评分的关系也直接反映了 SBO 患儿腰骶部 MRI 表现及下肢功能障碍的关系;即 MRI 表现的越复杂,下肢功能障碍越严重;随着年龄增大,下肢功能障碍表现的越来越严重。本研究中发现如果 SBO 患儿下肢运动功能障碍及足畸形严重,SBNS 量表分数低,腰骶部的 MRI 表现畸形越复杂。本研究中 SBO 患儿的腰骶部 MRI 表现 SBNS 量表评分在各年龄阶段呈逐渐降低的分布,包括仅有椎弓椎板缺如或(和)骶管脂肪沉积患儿的 SBNS 量表评分也是随年龄增大而逐渐减少,提示此类患儿需要早期治疗,以减轻下肢功能障碍,减少可能发生的残疾,减轻个人及社会负担,在临床上需要引起重视。

综上,本研究中发现 SBO 患儿多有腰部无力,这与下肢功能障碍的关系需要进一步研究。随着患儿年龄增大,SBO 患儿并下肢功能障碍加重的原因需进一步探讨,同时 SBO 患儿腰骶部 MRI 各类型表现及下肢功能障碍的详细作用机制及脊髓运动神经元如何变化需要进一步的研究,这对治疗及愈后有重要的指导意义。

参 考 文 献

- [1] Murray CB, Holmbeck GN, Ros AM, et al. A Longitudinal examination of health-related quality of life in children and adolescents with spina bifida[J]. J Pediatr Psychol, 2014, 38(11): 1465-1473.
- [2] Babbi L, Terzi S, Bandiera S, et al. Spina bifida occulta in high grade spondylolisthesis[J]. Eur Rev Med Pharmacol Sci, 2014, 18(s1): 8-14.
- [3] 鲍 南. 先天性脊柱裂近期分类及手术治疗现状[J]. 中华小儿外科杂志, 1999, 15(4): 57-59.
- [4] Nikolic D, Petronic I, Cvjetanin S, et al. Gender and morphogenetic variability of patients with spina bifida occulta and spina bifida aperta: prospective population-genetic study[J]. Hippokratia, 2012, 16(1): 35-39.
- [5] Petronic I, Nikolic D, Cirovic D, et al. Distribution of affected muscles and degree of neurogenic lesion in patients with spina bifida[J]. Arch Med Sci, 2011, 7(6): 1049-1054.
- [6] Urrutia J, Cuellar J, Zamora T. Spondylolysis and spina bifida occulta in pediatric patients: prevalence study using computed tomography as a screening method[J]. Eur Spine J, 2014, 22(8): 243-247.
- [7] Cofano GP, Anderson BC, Stumpff ER. Chiropractic care of acute low back pain and incidental spina bifida occulta: a case report[J]. J Chiropr Med, 2014, 13(4): 273-277.
- [8] Urrutia J, Zamora T, Cuellar J. Does the prevalence of spondylolysis and spina bifida occulta observed in pediatric patients remain stable in adults? [J]. J Spinal Disord Tech, 2014, 15(9): 83-91.
- [9] Colombo GL, Di Matteo S, Vinci M, et al. A cost-of-illness study of spina bifida in Italy[J]. Clinicoecon Outcomes Res, 2013, 5(3): 309-316.
- [10] Kumar P. Editorial comment to spina bifida occulta: not to be overlooked in children with nocturnal enuresis[J]. Int J Urol, 2013, 20(8): 836.
- [11] 刘亚兰, 文飞球, 周克英, 等. 伴隐性脊柱裂的儿童遗尿症的发病特点及治疗[J]. 实用儿科临床杂志, 2008, 23(5): 356-357, 387.
- [12] Oi S, Matsumoto S. A proposed grading and scoring system for spina bifida: Spina Bifida Neurological Scale (SBNS) [J]. Childs Nerv Syst, 1992, 8(6): 337-342.
- [13] Chern JJ, Aksut B, Kirkman JL, et al. The accuracy of abnormal lumbar sonography findings in detecting occult spinal dysraphism: a comparison with magnetic resonance imaging[J]. J Neurosurg Pediatr, 2012, 10(2): 150-153.
- [14] Tripathi RP, Sharma A, Jena A, et al. Magnetic resonance imaging in occult spinal dysraphism[J]. Australas Radiol, 1992, 36(1): 8-14.
- [15] Foster KA, Lam S, Lin Y, et al. Putative height acceleration following tethered cord release in children[J]. J Neurosurg Pediatr, 2014, 14(6): 626-634.
- [16] 刘福云, 李剑峰, 季泽娟, 等. 脊髓栓系综合征患儿的终丝扫描电镜研究[J]. 实用儿科临床杂志, 2010, 25(20): 1596-1597, 1600.
- [17] 汤锋武, 修 波, 崔之强, 等. 脊柱裂临床分类与神经功能评分[J]. 亚太传统医药, 2008, 12(9): 63-65.
- [18] Pires CR, de Medeiros JM, Araujo JE, et al. Occult spinal dysraphism in the presence of rare cutaneous stigma in a neonate: importance of ultrasound and magnetic resonance imaging[J]. Case Rep Med, 2013, 13(9): 468376.
- [19] Milicic G, Krolo I, Anticevic D, et al. Causal connection of non-specific low back pain and disc degeneration in children with transitional vertebra and/or Spina bifida occulta: role of magnetic resonance-prospective study[J]. Coll Antropol, 2012, 36(2): 627-633.
- [20] Palanisamy A, Klickovich RJ, Ramsay M, et al. Intravenous dexmedetomidine as an adjunct for labor analgesia and cesarean delivery anesthesia in a parturient with a tethered spinal cord [J]. Int J Obstet Anesth, 2009, 18(3): 258-261.
- [21] Ali L, Stocks GM. Spina bifida, tethered cord and regional anaesthesia[J]. Anaesthesia, 2005, 60(11): 1149-1150.
- [22] Li Y, Hou XY, Yuan ZW, et al. Quantitative analysis of motor neurons of the levator ani muscle in fetal rats with spina bifida occulta[J]. Surg Neurol, 2009, 72(6): 652-656.

(责任编辑: 冉明会)