

· 临床研究 ·

脊髓拴系松解术后脊柱裂患者的肛管直肠功能研究

李文成，肖传国

(华中科技大学同济医学院附属协和医院泌尿外科, 湖北 武汉 430022)

[摘要] 目的 与临床对于脊柱裂致膀胱功能障碍的大量研究报道相比, 关于脊柱裂患者的肠道功能障碍研究资料非常有限。该文拟研究脊柱裂患者行脊髓拴系松解术后的肛管直肠功能。**方法** 采用多通道肛管直肠测压技术对因排尿功能障碍而来就诊的21例脊柱裂患者进行肛管直肠功能检测, 入选患者皆已于至少2年前行脊髓拴系松解术。**结果** 脊柱裂患者的最大肛管静息压低于对照组, 但二者没有统计学差异($P = 0.372$)。在嘱脊柱裂患者行最大限度收缩肛门动作时, 绝大多数患者肛管压力没有任何升高。在行模拟排便动作时, 19例(90.5%)患者表现为盆底功能紊乱型肛管压力变化。直肠肛管抑制反射在所有受检者均存在, 诱发该反射所需最小直肠气囊容量在脊柱裂患者组和对照组间差异无显著性($P = 0.725$); 诱发持续性直肠肛管抑制反射所需直肠气囊容量在脊柱裂患者组显著性高于对照组($P < 0.001$)。直肠感觉阈值在脊柱裂患者显著高于对照组($P < 0.0001$)。**结论** 大多数脊柱裂患者不能自主收缩肛门外括约肌, 排便时表现为盆底功能紊乱型直肠肛管压力曲线, 同时直肠感觉功能也受到严重损害。直肠肛管抑制反射在所有脊柱裂患者均存在, 该反射可能受到中枢神经系统的调控。

[中国当代儿科杂志, 2005, 7(4):305-308]

[关键词] 脊柱裂; 脊髓拴系综合征; 神经源性肠道功能障碍; 肛管直肠测压; 儿童

[中图分类号] R682.1⁺3 [文献标识码] A [文章编号] 1008-8830(2005)04-0305-04

Anorectal function in children with spina bifida who underwent spinal cord untethering

Wen-Cheng LI, Chuan-Guo XIAO. Department of Urology, Union Hospital, Tongji Medical College, Huazhong University of Science and Technology, Wuhan 430022, China (Email: lwcnick@163.com)

Abstract: Objective Compared with numerous research reports of neurogenic bladder dysfunction of spina bifida, the research on neurogenic bowel dysfunction of spina bifida is rare. This study aimed at investigating the anorectal function in children with spina bifida who underwent the spinal cord untethering procedure. **Methods** Twenty-one children with spina bifida who underwent the untethering operation for tethered cord syndrome at least 2 years ago were enrolled in this study. All patients had severe bladder dysfunction and received anorectal manometry examination. Eleven age-matched children with hypospadias served as controls. **Results** The maximum anal resting pressure in spina bifida patients was lower than that in controls, but the difference was not statistically significant. Most of the patients did not show an anal pressure increase during squeezing action. During defecatory maneuvers, 19 spina bifida patients(90.5%) exhibited pelvic floor dysfunction. Rectoanal inhibitory reflex was identified in both spina bifida patients and controls. The rectal volume for sustained relaxation of the anal sphincter tone was significantly higher in spina bifida patients than in controls ($P < 0.001$). The mean rectal volume to generate the first sensation in spina bifida patients was significantly higher than that in controls ($P < 0.001$). **Conclusions** Most spina bifida patients lose the ability to voluntarily contract their external anal sphincter, presenting with pelvic floor dysfunction during straining maneuver and severe rectal sensation function damage. Rectoanal inhibitory reflex is present in all patients with spina bifida and the reflex may be modulated by central nervous system.

[Chin J Contemp Pediatr, 2005, 7(4):305-308]

Key words: Spina bifida; Tethered cord syndrome; Neurogenic bowel dysfunction; Anorectal manometry; Child

脊柱裂是常见的先天性出生缺陷, 主要表现为脊髓脊膜膨出和脊髓拴系综合征(tethered cord syn-

drome, TCS)。随着患者年龄的增长而逐步进展的下肢感觉和运动功能障碍以及膀胱/肠道功能障碍

[收稿日期] 2005-04-01; [修回日期] 2005-04-12

[基金项目] 国家科技部973计划重点基金资助项目(2003CB515300)

[作者简介] 李文成(1975-), 男, 博士, 主治医师。主攻方向: 神经泌尿外科学。

[通讯作者] 肖传国, 华中科技大学同济医学院附属协和医院泌尿外科, 武汉 430022。

是脊髓拴系综合征的特征性症状。对于脊髓拴系综合征患者而言,除了泌尿系统和下肢的功能障碍外,神经源性肠道功能障碍是严重影响其生活质量的重要因素^[1]。

传统治疗方法是行TCS松解术,及时行脊髓拴系松解术去除引起拴系的原因,可明显改善腰背疼痛和下肢感觉运动功能障碍^[2,3]。由于末段圆锥、马尾神经与周围病变组织相互渗透、交融在一起,在行脊髓拴系松解术时可能造成脊髓、神经和相应血管的副损伤^[4],而仅行远端终丝切断术又达不到良好的松解效果^[5],加之由于拴系时间长且程度重,多伴有脊髓和神经根的组织学的不可逆性病理损伤,这些因素导致脊髓拴系松解术对于TCS所致的大小便功能障碍不能得到很好的解决,一般认为仅有不到20%患者的大小便功能在拴系松解术后得到一定程度的改善^[6]。本研究拟采用多通道肛管直肠测压技术,对曾经接受脊髓拴系松解术但未获得膀胱功能改善的脊柱裂患者进行肛管直肠功能检测,以期综合评估这些患者的肛管直肠功能。

1 材料与方法

1.1 一般资料

自2003年11月至2004年10月,华中科技大学同济医学院泌尿外科研究所共收治21例脊柱裂患者(男性15例,女性6例),平均年龄8.9岁(4~15岁)。所有患者尿流动力学检查诊断为神经源性膀胱功能障碍;并伴有严重的便秘和大便失禁等肠道功能障碍;均在出生后48 h内行了脊膜膨出修补术,在本次就诊的至少2年前接受过脊髓拴系松解术治疗;无肛管直肠手术史。磁共振检查显示,所有患者有圆锥低位(L₄1例,L₅2例,S_{1,2}18例)、脊髓背侧移位及椎管扩张。行肛管直肠测压检测前72 h,停止所有可能影响肠道功能的治疗措施。

11例同期入院治疗的尿道下裂患者被纳入研究作为对照组(男性9例,女性2例),年龄分布与脊柱裂患者组相似(平均年龄9.2岁;范围5~14岁)。所有对照者均无神经系统和肛管直肠疾病史。

1.2 肛肠动力学检测

采用荷兰MMS公司生产的2020肛肠动力学检测系统。在行肛肠动力学检测前1 d,嘱受检者排空肠道。受检者取左侧卧位,屈膝屈髋90°,充分显露肛门外口。以轻柔的动作将8通道错列式测压导管(距导管顶端1~5 cm处捆缚有一乳胶无张力气囊,

距导管顶端6~13 cm处,每隔1 cm和45°分布有一个测压通道)置入肛管直肠内,使得最外端测压通道刚好进入肛门外口处,以医用胶布固定测压导管于患者右侧臀部皮肤。

具体检测程序如下:①检测肛管直肠静息压力值3 min;②嘱受检者最大限度收缩肛门外括约肌,至少持续30 s,连续检测3次,每两次间至少间歇1 min;③嘱患者行模拟排便动作至少10 s,连续检测3次,每两次间至少间歇1 min;④嘱患者尽量用力行咳嗽动作以瞬间提高腹内压力,连续检测3次,每两次间至少间歇30 s;⑤使用医用50 mL注射器分别以10,20,30,40,50 mL容积的空气依次注入直肠气囊内,以诱发直肠肛管抑制反射(Rectoanal Inhibitory Reflex, RAIR);⑥采用递增的方法以10 mL的起始容量和递增容量向直肠气囊内注入空气,以测得受检者的直肠感觉阈值和诱发持续RAIR所需直肠气囊容积,患者出现最大直肠耐受容量或者气囊被自动排出肛门外时检测终止。

1.3 统计学分析

所有数值型数据均采用均值±标准差表示。应用SPSS11.5统计学分析软件的独立样本t检验、单因素方差分析和Fisher精确概率检验法对数据进行统计学分析。以P<0.05为差异有显著性意义。

2 结果

2.1 直肠和肛管压力

脊柱裂患者的最大肛管静息压低于对照组,但二者没有统计学差异(P=0.372)。

在嘱脊柱裂患者行最大限度收缩肛门动作时,绝大多数肛管压力没有任何升高,相反在6例患者出现肛管压力异常下降。脊柱裂患者的最大肛管收缩压显著性低于对照组(P<0.0001);但与自身肛门收缩前的最大肛管静息压相比,差异无显著性(P=0.538)。

行咳嗽动作诱发腹压瞬间升高时,脊柱裂患者的最大肛管压低于对照组,但差异无显著性意义(P=0.068)。在21例脊柱裂患者行咳嗽动作时,发现15例(71.4%)在腹压增高的瞬间肛管压力虽有瞬间增高但幅度很小,且随后立即出现肛管压力的大幅度(低于静息肛管压甚至降至基线水平)、持续(往往数秒钟)性下降。见表1。

2.2 模拟排便动作

在行模拟排便动作时,存在两种不同的直肠肛管压力曲线变化:①盆底功能紊乱型,随着腹压的升

表1 肛管直肠测压检测结果

组别	例数	最大肛管静息压 (mmHg)	最大肛管收缩压 (mmHg)	咳嗽时最大直肠压 (mmHg)	咳嗽时最大肛管压 (mmHg)	PFD型 排便曲线(%)	诱发RAIR最小直肠容量 (mL)	诱发持续性RAIR直肠容量 (mL)	直肠感觉阈值 (mL)
对照组	11	48.6 ± 24.9	92.5 ± 32.9 ^b	43.5 ± 28.1	78.5 ± 25.4	9.1	18.2 ± 4.0	57.3 ± 18.5	40.9 ± 13.0
脊柱裂组	21	40.8 ± 20.3	36.3 ± 19.4 ^a	41.3 ± 16.5	59.9 ± 26.9	90.5 ^c	17.6 ± 4.4	122.2 ± 65.8 ^d	103.1 ± 47.9 ^e

^a与对照组比较 $q = 56.12, P < 0.0001$; ^b. 与同组最大肛管静息压比较 $q = 43.82, P < 0.0001$; ^c. Fisher 精确概率检验法两组比较, $P < 0.0001$; ^d. 与对照组比较 $t = 3.938, P < 0.001$; ^e. 与对照组比较 $t = 4.168, P < 0.0001$

高,肛管压力矛盾性升高、保持静息压力不变或仅有小幅度降低)。脊柱裂组 19 例(90.5%),对照组 1 例(9.1%)($P < 0.0001$);②协调下降型,随着腹压的升高,肛管压力协调性下降或先升高后协调性下降。脊柱裂组 2 例,对照组 10 例。见表 1。

2.3 直肠肛管抑制反射

直肠肛管抑制反射在所有脊柱裂患者和对照者中均存在。诱发 RAIR 所需最小直肠气囊容量在两组间差异无显著性($P = 0.725$);诱发持续性 RAIR 所需直肠气囊容量在脊柱裂患者组显著性高于对照组($P < 0.001$)。见表 1。

2.4 直肠感觉阈值

21 例脊柱裂患者中有 13 例报告在直肠气囊充气过程中可以产生盆部或下腹部非特异性感觉。产生这种非特异性感觉所需最小直肠气囊容量在脊柱裂组显著性高于对照组($P < 0.0001$)。7 例脊柱裂患者在未产生任何感觉前直肠气囊被自动排出肛门外,另 1 例患者在直肠气囊充气至 300 mL 仍未产生任何感觉。见表 1。

3 讨论

Marte^[7]对脊柱裂的研究中认为,患者肛管括约肌压力显著低于正常对照组。本文的研究则有不同发现:脊柱裂患者的最大肛管静息压虽然低于正常对照组,但二者间比较没有统计学差异。本组所有患者均为腰骶节段脊柱裂所致 TCS,理论上应该主要发生圆锥和马尾神经的损伤,而其高位节段的脊髓和脊神经则发育良好^[8]。我们认为,由于约 75%~85% 的肛管静息压产生自肛门内括约肌的张力性活动^[9],并且脊柱裂患者支配肛门内括约肌的交感神经所受损伤较小,甚至保持完整且与高位中枢保持连续,因而交感神经对肛门内括约肌的兴奋性支配仍然存在,使肛门内括约肌的张力得以保持。

嘱脊柱裂患者行最大限度收缩肛门动作时,绝大多数肛管压力没有任何升高,在 6 例患者反而出现肛管压力异常下降。我们认为,由于长期的脊髓

拴系导致骶髓的损伤以及相关神经根的变性甚至坏死,大部分患者均丧失了自主收缩肛门外括约肌的能力。经详细询问病史,6 例出现肛管压力异常下降的患者由于长期的排便障碍,均有在排便时如果交替行缩肛和屏气排便动作,会比单纯行屏气排便动作更容易的将大便排泄出来。我们推测,这些患者由于长期将缩肛和屏气排便动作作为自身独特的排便动作来训练和使用,导致了大脑相关中枢的功能重塑和/或残存低位排便中枢产生了某些突触联系,使得缩肛动作产生肛门内括约肌和肛门外括约肌的松弛效应。

行咳嗽动作诱发腹压瞬间升高时,脊柱裂患者的最大肛管压与对照组相比虽然没有显著性差异,但二者相差幅度不小(59.9 ± 26.9 vs 78.5 ± 25.4 mmHg)。而且,在 21 例脊柱裂患者行咳嗽动作时,发现 15 例(71.4%)患者在腹压增高的瞬间肛管压力虽有瞬间增高但幅度很小,且随后立即出现肛管压力的大幅度(低于静息肛管压甚至降至基线水平)、持续性(往往数秒钟)下降。这种现象在以前的文献中未见到报道,可能是导致脊柱裂患者在咳嗽时出现大便失禁的原因之一。本研究认为,为了维持良好的控便状态,咳嗽反射的压力增高值和持续时间均是重要的参数。这种现象的出现可能提示脊柱裂患者的咳嗽反射受到了一定程度的损坏。

为了顺畅排便,人们在排便时需要肛门外括约肌协调性松弛。正常人在行模拟排便动作时,肛门外括约肌被高位中枢的下行抑制系统主动抑制;但在圆锥及圆锥上脊髓损伤后,这个下行抑制系统可能受到破坏,此时行模拟排便动作在圆锥损伤患者并不能使肛门外括约肌松弛;相反,在圆锥上脊髓损伤患者反而出现肛门外括约肌活动反常性增加,从而增加排便阻力,引起排便困难,此即盆底功能紊乱。本研究中 19 例(90.5%)脊柱裂患者在行模拟排便动作时表现为盆底功能紊乱,提示这些患者的下行抑制系统受到破坏。正常排便不仅依赖于结肠的蠕动和腹内压的增加,而且也依赖于肛门括约肌的协调性松弛。因此,我们认为盆底功能紊乱的存

在是这些患者表现为严重排便困难的原因之一。其中1例患者表现为反常肛门外括约肌收缩现象,是脊髓拴系对脊髓的长期牵拉导致圆锥上脊髓损伤的结果。Rao^[10]在研究中发现22%的正常人在左侧卧位行模拟排便动作时表现为盆底功能紊乱,而当采用坐位行模拟排便动作时仅有5%的正常人出现盆底功能紊乱。本研究也发现正常人在左侧卧位行模拟排便动作时可以出现盆底功能紊乱。

本研究发现,脊柱裂组和对照组所有受检者均可诱发RAIR,诱发RAIR所需最小直肠气囊容量在两组相似,但诱发持续RAIR所需直肠气囊容量在脊柱裂患者组则显著性高于对照组。这印证了RAIR是由肠壁肌间神经丛介导的观点,但同时也提示我们,RAIR可能受到脊髓甚至高位神经中枢的调控。由于在正常人肛门内括约肌同时受到胸腰段交感神经的兴奋性下行支配和骶髓副交感神经的抑制性支配,而腰骶部脊髓损伤后交感神经的支配基本完整存在,但副交感神经支配受到严重损坏,我们推测,RAIR的改变可能是由于脊髓中枢和/或高位中枢对肠壁肌间神经丛(神经层面)直接的调控改变所致,也可能是由于神经中枢对肛门内括约肌的支配的改变导致了肛门内括约肌(肌肉层面)对肠壁肌间神经丛反射敏感性的改变所致。许多脊柱裂患者由于长期严重便秘的存在使得直肠容量增加,但本研究不认为是直肠容量的增加导致了这种差异,因为诱发肛门内括约肌松弛所需最小直肠容量在脊柱裂患者组和对照组间相似,说明直肠壁对气囊扩张刺激的敏感性基本一样。

本研究中,21例脊柱裂患者中有13例报告在直肠气囊充气过程中可以产生盆部或下腹部非特异性感觉,其平均阈值显著性高于对照组。这提示在脊柱裂患者,正常的直肠感觉传入通路受到了破坏。脊髓损伤患者也存在这种非特异性直肠感觉,有研究者^[11]认为这种非特异性直肠感觉一定是沿着进入损伤平面以上高位胸椎的传入神经传入大脑。但Lynch^[12]对这种假说持否定观点,他们在研究中发现有5例完全性颈椎损伤患者也存在这种非特异性

直肠感觉。这使得这种非特异性直肠感觉的产生机制仍然得不到合理解释。我们推测,也许存在一条旁路传入途径,绕过脊髓而将这种非特异性内脏感觉传导入高位中枢。

[参考文献]

- [1] Kayaba H, Hebiguchi T, Itoh Y, Yoshino H, Mizuno M, Morii M, et al. Evaluation of anorectal function in patients with tethered cord syndrome: saline enema test and fecoflowmetry [J]. J Neurosurg, 2003, 98(3 Suppl): 251-257.
- [2] Wehby MC, O'Hollaren PS, Abtin K, Hume JL, Richards BJ. Occult tight filum terminale syndrome: results of surgical untethering [J]. Pediatr Neurosurg, 2004, 40(2): 51-57.
- [3] Haro H, Komori H, Okawa A, Kawabata S, Shinomiya K. Long-term outcomes of surgical treatment for tethered cord syndrome [J]. J Spinal Disord Tech, 2004, 17(1): 16-20.
- [4] Yamada S, Won DJ, Siddiqi J, Yamada SM. Tethered cord syndrome: overview of diagnosis and treatment [J]. Neurol Res, 2004, 26(7): 719-721.
- [5] 贺增良, 兰宾尚, 郑春霞, 韩贵和, 蒋逊, 吕惠茹. 成人和儿童脊髓栓系综合征的对比分析 [J]. 中国矫形外科杂志, 2003, 11(13): 892-894.
- [6] Murasko KM. 成人和儿童椎管闭合不全. 见: Grossman RG, Loftus CM. 王任直, 主译. 神经外科学 [M]. 第2版. 北京: 人民卫生出版社, 2002: 49-62.
- [7] Marte A, Cotrufo AM, Di Iorio G, De Pasquale M. Electromyographic and manometric anorectal evaluation in children affected by neuropathic bladder secondary to myelomeningocele [J]. Minerva Pediatr, 2001, 53(3): 171-176.
- [8] Yamada S, Won DJ, Yamada SM. Pathophysiology of tethered cord syndrome: correlation with symptomatology [J]. Neurosurg Focus, 2004, 16(2): E6.
- [9] Barnett JL, Hasler WL, Camilleri M. American gastroenterological association medical position statement on anorectal testing techniques [J]. Gastroenterology, 1999, 116(3): 732-760.
- [10] Rao SS, Hatfield R, Soffer E, Rao S, Beaty J, Conklin JL. Manometric tests of anorectal function in healthy adults [J]. Am J Gastroenterol, 1999, 94(3): 773-783.
- [11] MacDonagh R, Sun WM, Thomas DG, Smallwood R, Read NW. Anorectal function in patients with complete supraconal spinal cord lesions [J]. Gut, 1992, 33(11): 1532-1538.
- [12] Lynch AC, Anthony A, Dobbs BR, Frizelle FA. Anorectal physiology following spinal cord injury [J]. Spinal Cord, 2000, 38(10): 573-580.

(本文编辑:吉耕中)