

doi: 10.7499/j.issn.1008-8830.2003006

论著 · 临床研究

46 例儿童吞气症单中心回顾性分析

郑玉灿 潘键 张志华 刘志峰 郝理华 钱蓉

(南京医科大学附属儿童医院消化科, 江苏南京 210008)

[摘要] **目的** 探讨儿童吞气症的临床特点。**方法** 对 2011 年 10 月至 2019 年 9 月南京医科大学附属儿童医院中心诊治的 46 例吞气症患儿的临床资料进行回顾性分析。**结果** 46 例吞气症患儿中, 15 例 (33%) 合并多发性抽动症 (TS)。腹胀为最主要的症状 (45 例, 98%)。24 h 食管阻抗检测显示, 24 h 气体吞咽次数平均为 341 次, 24 h 气体反流次数平均为 212 次, 直立位气体反流占总气体反流比例为 95%。合并 TS 患儿与未合并 TS 患儿相比, 吞气症状发生率明显高于单纯吞气症患儿 (67% vs 6%, $P < 0.001$), 其他症状及 24 h 食管阻抗结果二者无明显差异。通过饮食调整、心理行为治疗及药物干预, 患儿临床症状评分、儿童生活质量评分均得到明显改善, 其中心理行为治疗为重要干预措施之一。**结论** 部分吞气症患儿合并 TS, 合并 TS 的患儿吞气症状更常见; 心理行为治疗为吞气症患儿重要的治疗方法之一, 患儿预后良好。

[中国当代儿科杂志, 2020, 22(9): 975-979]

[关键词] 吞气症; 抽动症; 心理行为治疗; 儿童

A single-center retrospective analysis of 46 children with aerophagia

ZHENG Yu-Can, PAN Jian, ZHANG Zhi-Hua, LIU Zhi-Feng, HAO Li-Hua, QIAN Rong. Department of Gastroenterology, Children's Hospital of Nanjing Medical University, Nanjing 210008, China (Pan J, Email: pj18761883012@163.com)

Abstract: Objective To study the clinical features of aerophagia in children. **Methods** A retrospective analysis was performed on the medical data of 46 children with aerophagia who were diagnosed and treated in Children's Hospital Affiliated to Nanjing Medical University from October 2011 to September 2019. **Results** Among these 46 children, 15 (33%) had Tourette syndrome. Abdominal distension was the most common symptom and was observed in 45 children (98%). The 24-hour esophageal multichannel intraluminal impedance monitoring showed a mean number of 341 times of air swallowing and a mean number of 212 times of gas reflux, and 95% of gas refluxes occurred in the upright body position. Compared with those without Tourette syndrome, the children with Tourette syndrome had a significantly higher incidence rate of air swallowing symptoms (67% vs 6%, $P < 0.001$), but there were no significant differences in other symptoms and the results of 24-hour esophageal impedance. Dietary adjustment, psycho-behavioral therapy, and drug intervention significantly improved the scores of clinical symptoms and quality of life, among which psycho-behavioral therapy was an important intervention measure. **Conclusions** Some children with aerophagia may have Tourette syndrome, and such children are more likely to have air swallowing symptoms. Psycho-behavioral therapy is one of the most important treatment methods, and children with aerophagia tend to have a good prognosis after treatment.

[Chin J Contemp Pediatr, 2020, 22(9): 975-979]

Key words: Aerophagia; Tourette syndrome; Psycho-behavioral therapy; Child

儿童吞气症是一类临床较为少见的胃肠道功能性疾病。患者由于吞入大量气体而导致一系列消化道症状, 表现为腹胀、嗝气、食欲下降、肛门排气增多等。吞气症自 1891 年法国 Bouveret 首

次报道以来, 迄今已有 100 多年历史^[1], 但国内对儿童吞气症的认识及报道起步较晚。自 2010 年起国内陆续出现儿童病例的报道及临床分析^[2-3]。近年我们在对该病的临床诊治及随访工作中发现,

[收稿日期] 2020-03-01; [接受日期] 2020-07-20

[作者简介] 郑玉灿, 女, 硕士, 主治医师。

[通信作者] 潘键, 女, 副主任医师。Email: pj18761883012@163.com。

部分吞气症患者除了有腹胀、暖气等主要消化道表现外，还伴有不同程度运动性抽动和/或发声性抽动，提示该疾病可能与多发性抽动症（Tourette syndrome, TS）等神经精神疾病有一定关系。TS是一种起源于儿童期的以慢性多发运动性抽动为特征的神经精神疾病，多伴有强迫、多动行为或情绪障碍等。国外亦有类似的两种疾病相关联的个案报道^[4]。本研究回顾性分析我院明确诊断为吞气症并持续随访患儿46例的临床资料，其中包括合并TS患儿15例，旨在提高儿科医生对吞气症及吞气症合并TS的认识。

1 资料与方法

1.1 研究对象

研究对象为2011年10月至2019年9月我院消化科明确诊断为吞气症并予以随访的患儿46例，其中合并TS 15例。TS是在患儿吞气症诊断时或在后续的随访中诊断明确的。吞气症的诊断符合罗马IV标准^[5]：（1）过度吞咽空气；（2）白天由于胃肠胀气而导致的腹胀；（3）反复暖气或肛门排气增多。在排除其他疾病的前提下，有以上两项表现并且病程持续2个月以上即可诊断。TS的诊断符合《精神疾病诊断与统计手册（第5版）》提出的诊断标准^[6]：（1）具有多种运动性抽动及1种或多种发声性抽动，有时不一定同时出现；（2）抽动反复，频率不一，但病情持续时间或间断发作已超过1年；（3）发病于18岁前；（4）上述症状不能直接归因于某些药物（如兴奋剂）或内科疾病（如亨廷顿舞蹈病或病毒感染后脑炎）所致。

1.2 研究方法

收集所纳入46例患儿的临床资料，包括流行病学资料、临床特征、实验室检查、治疗及预后情况。参照胃肠道症状评分^[7]（Gastrointestinal

Symptom Rating Scale, GSRS）评价吞气症患者消化道症状的严重程度；运用耶鲁综合抽动严重程度量表^[8]（Yale Global Tic Severity Scale, YGTSS）评价TS症状严重程度；运用疾病相关儿童生活质量评分^[9]（Pediatric Quality of Life InventoryTM, PedsQLTM）评价患儿的生活质量。根据有无合并TS，将46例患儿分为两组：合并TS组及未合并TS组。对两组患儿的一般资料、胃肠道症状发生情况，以及实验室检查结果进行比较。治疗前及治疗8周后进行GSRS、YGTSS、PedsQLTM评分，观察症状改善情况。

本研究已获我院医学伦理委员会的审批（202009069-1）。

1.3 统计学分析

应用SPSS 20.0统计学软件分析数据。正态分布的计量资料采用均数±标准差（ $\bar{x} \pm s$ ）表示，组间比较采用成组t检验或配对t检验；非正态分布的计量资料采用中位数（范围）表示，组间比较采用Mann-Whitney U检验或Wilcoxon符号秩检验；计数资料采用例数和百分率（%）表示，组间比较采用 χ^2 检验。P<0.05为差异有统计学意义。

2 结果

2.1 基本资料

46例吞气症患者中，男童31例，女童15例，年龄1.5~13.8岁（6.3±0.9岁）。其中幼儿6例（13%），年龄1.5~2.8岁；学龄前儿童17例（37%），年龄3.0~5.7岁；学龄儿童19例（41%），年龄6.0~9.9岁；青春期儿童4例（9%），年龄10.0~13.8岁。其中15例（33%）合并TS。15例合并TS患儿中，男童12例，女童3例，年龄3.5~10.6岁（6.4±2.4岁）。合并TS及未合并TS的吞气症患者年龄及性别的比较差异无统计学意义（表1）。

表1 吞气症合并TS及未合并TS患儿临床资料的比较

组别	例数	年龄 ($\bar{x} \pm s$, 岁)	性别 (男/女, 例)	临床症状 [n(%)]				24 h食管阻抗结果		
				吞气	腹胀	暖气	肛门排气	24 h 吞咽次数 [中位数(范围), 次]	气体反流 [中位数(范围), 次]	直立位气体反流 比例($\bar{x} \pm s$, %)
合并TS组	15	6.4 ± 2.4	12/3	10(67)	15(100)	7(47)	11(73)	319(138~752)	191(43~605)	95.0 ± 2.6
未合并TS组	31	6.3 ± 3.2	19/12	2(6)	30(97)	18(58)	18(58)	352(100~910)	222(38~654)	95.0 ± 2.5
<i>t</i> / χ^2 /Z 值		0.11	1.61	16.01	0.50	0.53	1.01	-0.164	-0.059	-0.05
P 值		0.39	0.32	<0.001	1.00	0.54	0.35	0.87	0.95	0.81

2.2 临床表现

46例患儿中,45例(98%)以腹胀为主诉就诊,临床主要以肛门排气增多(29例,61%)、嗝气(25例,54%)、吞气(12例,26%)为主要表现。其他消化道症状还包括:食欲不振、呕吐、腹痛、腹泻、便秘等。腹胀症状一般晨轻暮重,随着白天清醒时不自主的吞气动作,逐渐出现腹胀,且进食后加重,而随着夜间睡眠休息吞气动作停止,腹胀症状基本缓解、消失。体查一般可见腹部膨隆、肠鸣音活跃或亢进。15例合并TS患儿除了存在明显的胃肠道表现外,还合并有颈部抽动、清嗓子、张大嘴巴吞气、频繁眨眼、皱眉、皱鼻子、噘嘴、耸肩、摇头、扭颈、喉间发声等表现。合并TS组及未合并TS组患儿之间一般情况及胃肠道症状发生情况差异描述见表1。其中合并TS患儿的吞气症状发生率明显高于未合并TS患儿($P<0.05$),而两组腹胀、嗝气、肛门排气等症状发生率的比较差异无统计学意义($P>0.05$)。

2.3 实验室检查

吞气症患儿腹部B超、腹部平片、腹部CT均可见明显肠腔胀气,无腹腔占位、积液等其他表现。部分患儿进行了血常规、血生化、大便常规、大便培养、头颅CT、脑电图等检查除外其他疾病。所有患儿均经家长同意后行24h食管阻抗监测检查(使用荷兰MMS Solar GI胃肠动力学检查系统)。结果显示,24h气体吞咽最多910次,最少100次,平均341次;24h气体反流最多654次,最少38次,平均212次;直立位气体反流占所记录气体反流的95%。两组患儿24h食管阻抗检查的各指标比较差异无统计学意义(表1)。

2.4 治疗及随访

2.4.1 心理行为治疗 采用一般的心理教育干预和习惯逆转训练^[10],通过日常就诊访视、线上授课等方式操作实现,每周40min,持续4~6周。一般的心理教育干预主要是患儿及家属与治疗师保持良好的沟通,内容包括:(1)向患儿及家属介绍吞气症及TS的相关知识,让其理解吞气及抽动是一种疾病,而非调皮或故意捣乱;嘱咐家长避免过度指责患儿,增强患儿的自信心,消除自卑感。(2)注意减轻患儿的学习和生活压力,避免过度紧张及疲劳;适当增加体育活动,如跑步、踢球;避免观看有刺激性画面的影视剧和该类电

动游戏。(3)注意淡化及转移异常行为,如发现吞气、抽动明显时,与之交谈,或要求患儿帮忙传递物品等,干些轻松的事情以转移紧张焦虑的情绪。(4)观察诱发症状出现的场景及事件,与治疗师共同讨论制订改善解决类似问题的方案。

习惯逆转训练主要包括:(1)让患儿意识到不自主的吞气或抽动行为,治疗师指导家长观察记录患儿动作的先兆和细节,让患儿观看自己的视频,逐渐做到记录认识自己的不自主动作。

(2)指导患儿在意识到吞气动作时,说出某个字母,比如t,如患儿说漏,家长说出t作为提醒。在家中自行练习,每周2~3次,每次持续30min。

(3)指导患儿在意识到吞气动作时,有意识地深呼吸后缓慢吐气,持续30s或吞咽抽动冲动消失。每周训练3~4次,每次持续30min。(4)支持鼓励,正性激励:每完成一定量的训练,给予适当奖励,如额外完成训练,明确提出表扬。

2.4.2 作息及饮食调整 妥善安排日常作息,避免过度劳累,适当进行文体活动。避免进食坚硬的糖果和口香糖,注意小口进食,避免进食含气饮料^[11]。合并TS患儿还应尽量减少食品添加剂、色素、咖啡因、水杨酸的摄入。

2.4.3 药物治疗 给予乳果糖口服(1~6岁每日5~10mL;7~14岁10~15mL,口服2~3个月后缓慢减停),部分症状较重者同时给予西甲硅油口服(1~6岁每日3~5次,每次1mL;6~14岁每日3~5次,每次2mL,口服2~3个月后逐步减停)。本研究中大部分合并合并TS患儿抽动症状较轻,12例仅予心理疏导、行为干预,未予特殊针对TS的药物;3例心理行为治疗效果欠佳,加用氟哌啶醇口服(1mg/次起始,逐步加量至症状控制,每日总量2~6mg,口服2~3个月后逐步减停)。

2.4.4 治疗效果及随访情况 以电话、网络或门诊复诊形式对46例患儿进行随访,随访时间6个月至5年,中位随访时间为3年。包括合并TS的所有患儿均未出现严重并发症及死亡,远期随访效果良好,缓解率为100%。

31例单纯吞气症患儿中,12例(39%)通过心理行为治疗、口服乳果糖后症状缓解,19例(61%)心理行为治疗联用西甲硅油口服后症状缓解。31例患儿中4例患儿停药2~3个月后症状反复,再次口服西甲硅油仍然有效。

15例吞气症合并TS患儿中,12例(80%)通过心理行为治疗、口服乳果糖或西甲硅油后消化道症状及抽动症状消失;3例(20%)抽动症状改善不明显,加用氟哌啶醇口服后症状改善。合并TS组患儿治疗前YGTSS评分为 13.3 ± 3.1 分,治疗8周后为 5.2 ± 2.1 分,治疗前后的差异有统计学意义($t=11.0, P<0.001$)。

与治疗前比较,治疗8周后合并TS与未合并TS两组患儿临床症状、生活质量均有明显改善(表2、表3)。治疗8周后合并TS组患儿的PedsQL™评分显著高于未合并TS组($P<0.05$)。两组患儿治疗前及治疗8周后的GSRs分值比较差异无统计学意义($P>0.05$)。

表2 治疗前后临床症状改善情况
[GSRs分值;中位数(范围)]

组别	例数	治疗前	治疗8周	Z值	P值
合并TS组	15	13(6~19)	2(1~2)	-3.41	0.001
未合并TS组	31	11(5~19)	2(1~3)	-4.87	<0.001
Z值		-1.10	-0.40		
P值		0.27	0.69		

注:[GSRs]胃肠道症状评分。

表3 治疗前后生活质量改善情况
[PedsQL™分值;中位数(范围)]

组别	例数	治疗前	治疗8周	Z值	P值
合并TS组	15	6(3~10)	1(0~3)	-3.44	0.001
未合并TS组	31	5(3~12)	0(0~6)	-4.90	<0.001
Z值		-1.57	-2.53		
P值		0.117	0.011		

注:[PedsQL™]疾病相关儿童生活质量评分。

3 讨论

吞气症目前病因尚不明,被认为是一种功能性胃肠病,儿童病例临床较为少见,有时作为其他胃肠道功能性疾病的合并症出现,如肠易激综合征、便秘、功能性腹痛等。有研究表明,吞气症在神经认知障碍的儿童中发病率更高^[12],且不良生活事件、创伤打击、精神压力与吞气症的发病相关^[13]。而儿童TS是一种相对常见的儿童期神经精神性疾病,以慢性多发运动性抽动和/或发声性抽动为特征,临床表现复杂多样^[14]。大多数学

者认为其除了遗传倾向外,还可能与神经递质失衡因素、病理因素、精神心理因素或环境因素等有关。严重的精神创伤、反复的精神压力、极度的情绪激动或偏离常态的社会家庭教育等会诱导或加重其发作^[15]。故而可以说,吞气症及TS的发生存在共同的病因。

儿童吞气症和儿童TS人群发病年龄相似,多见于学龄期及学龄前儿童,男童多于女童^[6]。本研究有类似的发现,学龄期及学龄前儿童共36例,占总数的78%;在合并TS组及未合并TS组中男童的占比分别为80%及61%,显示吞气症患儿中男童更为常见。由于吞气症合并TS的患儿症状表现多样,严重程度各异,家长选择就诊方向也有所不同,往往单一选择就诊消化科或儿童神经精神科,容易导致漏诊,并由此导致单一、不全面的治疗方案。在本组病例中,除1例患儿以频繁吞气为主诉症状就诊外,大部分患儿均以腹胀为主诉就诊;其中有2例患儿家长在初诊消化科之前已观察到患儿合并存在的异常抽动行为,曾就诊神经科;有5例患儿家长注意到患儿有清嗓子、眨眼等抽动表现,但未予重视;还有8例患儿是初次就诊后,医生嘱家长细心观察,在后续随访期间确诊为吞气症。吞气症的三大主要症状除了腹胀可体查发觉外,其他均需依赖日常家长的细心观察或就诊时医生的细心观察。本研究中,合并TS患儿吞气症状的发生率明显高于未合并TS患儿。这也提示临床医生,如果就诊患儿表现出吞气症状时需追问有无抽动行为;而对于TS患儿有频繁吞咽动作时,需警惕是否合并吞气症。既往国外亦有类似的以吞气为主要临床表现的TS个案报道^[4]。

吞气症的诊断主要依赖症状学表现,目前尚无特异性的实验室检查方法。而部分家长可能因未有意识地观察患儿的吞气行为,无法提供确切的病史,故不能及时准确地诊断儿童吞气症。我院既往曾开展过多通道腔内阻抗技术(multichannel intraluminal impedance, MII)用于辅助诊断吞气症的研究,显示MII可以作为一种很好的辅助诊断方法^[3]。本研究中所有患儿均行24h食管阻抗检测,均显示有较多的吞咽次数,包括34例未表述出吞气症状的患儿。由于大量气体的吞入,气体造成的反流也明显增多,包括21例未表述出暖气症状

的患儿。与胃食管反流不同的是,这种气体反流主要在直立位时发生,这也与吞气动作常在白天发生、睡眠时消失相吻合。合并TS的吞气症患者24h食管阻抗检测结果与未合并TS的吞气症患者无明显差异。

精神心理因素是吞气症与TS的共同发病因素,因此心理行为治疗为吞气症及TS患儿的重要治疗手段之一^[10,16-17]。尤其对于轻症患者甚至仅需心理行为干预、辅助用药即可达到缓解。本研究15例吞气症合并TS患儿中,4例患儿采用心理行为治疗及口服乳果糖后症状缓解;8例采用心理行为治疗及口服西甲硅油后症状缓解;仅3例心理行为治疗后症状改善不明显,加用氟哌啶醇后症状改善。31例未合并TS的患儿通过心理行为治疗结合乳果糖口服或心理行为治疗结合西甲硅油口服治疗后症状缓解。国外有报道,除了使用西甲硅油、乳果糖等药物外,氯硝西洋也可用于吞气症的治疗^[12],但因其可能存在较大的不良反应,国内应用较少。

吞气症及TS可严重影响儿童的心理发育、学习及社会适应能力,应引起家长及医生的重视。本研究通过疾病相关生活质量评分的调查,发现单纯吞气症及吞气症合并TS患儿的生活质量均受到明显影响,与既往的研究结果吻合^[18]。通过积极的综合治疗后,在临床症状缓解的同时,患儿生活质量亦可以得到明显改善。

综上,本研究显示,部分吞气症患者合并TS,合并TS的患儿吞气症状发生率明显高于单纯吞气症患者;心理行为治疗为吞气症患者重要的治疗方法之一,患儿预后良好。本研究提示临床医生,人作为一个社会生物,疾病的产生往往是社会、生物、精神等多因素作用的结果,临床医生的诊断治疗有时不能单纯局限于本专科疾病,要多学科考虑,综合处理。

[参 考 文 献]

[1] 孔桂萍,练敏,郝理华. 儿童吞气症[J]. 国际儿科学杂志, 2012, 39(6): 612-614.
[2] 郝理华,刘志峰. 儿童吞气症12例临床分析[J]. 临床儿科杂志, 2010, 28(6): 574-575.
[3] 刘志峰,郝理华,金玉,等. 24h食管阻抗监测在儿童吞气

症诊断中的作用[J]. 中华实用儿科临床杂志, 2015, 30(7): 498-500.
[4] Weil RS, Cavanna AE, Willoughby JM, et al. Air swallowing as a tic[J]. J Psychosom Res, 2008, 65(5): 497-500.
[5] Zeevenhooven J, Koppen IJ, Benninga MA. The new Rome IV criteria for functional gastrointestinal disorders in infants and toddlers[J]. Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr, 2017, 20(1): 1-13.
[6] American Psychiatric Association. Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (5th ed)[M]. Arlington, VA: American Psychiatric Publishing, 2013: 81.
[7] Hutchings HA, Cheung WY, Russell IT, et al. Psychometric development of the Gastrointestinal Symptom Rating Questionnaire (GSRQ) demonstrated good validity[J]. J Clin Epidemiol, 2015, 68(10): 1176-1183.
[8] McGuire JF, Piacentini J, Storch EA, et al. A multicenter examination and strategic revisions of the Yale Global Tic Severity Scale[J]. Neurology, 2018, 90(19): e1711-e1719.
[9] Kikuchi R, Mizuta K, Urahashi T, et al. Development of the Japanese version of the pediatric quality of life inventory™ transplant module[J]. Pediatr Int, 2017, 59(1): 80-88.
[10] 中华医学会儿科学分会神经学组. 儿童抽动障碍诊断与治疗专家共识(2017实用版)[J]. 中华实用儿科临床杂志, 2017, 32(15): 1137-1140.
[11] Silva AC, Aprile LR, Dantas RO. Effect of gum chewing on air swallowing, saliva swallowing and belching[J]. Arq Gastroenterol, 2015, 52(3): 190-194.
[12] Lee GH, Jang HJ, Hwang JB. Clonazepam treatment of pathologic aerophagia in children with mental retardation[J]. Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr, 2014, 17(4): 209-213.
[13] Rajindrajith S, Hettige S, Gulegoda I, et al. Aerophagia in adolescents is associated with exposure to adverse life events and psychological maladjustment[J]. Neurogastroenterol Motil, 2018, 30(3): e13224.
[14] Martino D, Pringsheim TM. Tourette syndrome and other chronic tic disorders: an update on clinical management[J]. Expert Rev Neurother, 2018, 18(2): 125-137.
[15] Morand-Beaulieu S, Lavoie ME. Cognitive and motor event-related potentials in Tourette syndrome and tic disorders: a systematic review[J]. Clin Neurophysiol, 2019, 130(6): 1041-1057.
[16] Morabito G, Romeo C, Romano C. Functional aerophagia in children: a frequent, atypical disorder[J]. Case Rep Gastroenterol, 2014, 8(1): 123-128.
[17] Seragni G, Chiappedi M, Bettinardi B, et al. Habit reversal training in children and adolescents with chronic tic disorders: an Italian randomized, single-blind pilot study[J]. Minerva Pediatr, 2018, 70(1): 5-11.
[18] Lewis ML, Palsson OS, Whitehead WE, et al. Prevalence of functional gastrointestinal disorders in children and adolescents[J]. J Pediatr, 2016, 177: 39-43.e3.

(本文编辑: 邓芳明)