·病例报告·

食管球囊造影联合CT引导下环咽肌肉毒毒素注射治疗脑干损伤后吞咽障碍1例报告

岳寿伟[1] 怀 娟[1] 关家文[2] 于瑞雪[1] 刘 琳[1]

吞咽障碍是由于下颌、双唇、舌、软腭、咽喉、食管括约肌或食管功能受损，不能安全有效地将食物由口送到胃内取得足够营养和水分的进食困难[1]。经口到胃的通道中的任何疾病均可引起吞咽障碍，如口咽腔、食管肿瘤等占位性病变，神经系统疾病、咽肌无力等[1]。脑干损伤是最常见的引起吞咽障碍的神经系统疾病，其引起的吞咽障碍中，环咽肌失弛缓是常见原因。我们采用食管球囊造影联合CT引导，进行环咽肌肉毒毒素注射，成功治疗脑干损伤后顽固性吞咽障碍1例，取得较满意的临床疗效。现报道如下。

1 病例资料

患者，女，13岁，病案号16077071，入院时间2016年9月19日。患者于11个月前无明显诱因出现头晕，间断发作，休息后可缓解，未予特殊处理。6个月前行颅脑MRI示：小脑幕下方占位病变，小脑及第四脑室受压严重，不均匀强化影，中心处可见明显增强结节。遂行小脑占位切除术，术中见肿瘤体积约5cm×4cm×3cm大小，起源于脑干背侧及小脑蚓部，后组脑神经受累变形。术后患者出现吞咽障碍，留置胃管，左侧肢体肌力下降，在当地医院行康复治疗，肢体肌力恢复，但吞咽功能改善不明显。术后111天入我科行康复治疗。

入院时评定：神志清，言语流利，声音嘶哑。双侧鼻唇沟对称，可完成缩唇鼓腮运动。无流涎，饮水呛咳，吞咽后咳嗽明显，不能经口进食。张口不受限，悬雍垂居中，伸舌居中，舌运动灵活充分。左侧软腭抬升差，左侧咽反射迟钝，右侧咽反射可。功能性经口摄食量表(FOIS)评定为1级。四肢肌张力正常，双侧肢体肌力5级，指鼻及跟膝胫试验尚稳准。消瘦明显，体重较发病前减轻约6kg。

经常规康复训练，包括神经肌肉电刺激、吞咽肌肉功能训练及球囊扩张术等治疗后，吞咽障碍无改善。行改良导尿管球囊扩张术时，向球囊内注入生理盐水2ml即较难通过环咽肌，多次治疗效果差。行吞造影剂透视检查，使患者吞下造影剂(碘普罗胺注射液300,微黄色澄明液体)2ml后,行X线检查,示造影剂积聚于梨状隐窝，不能下咽，随即咳出。以上检查提示环咽肌不能正常开放(图1)。

2 治疗方法

患者坐位，先将带有球囊的无菌8号硅胶导尿管插入患者食管内，成功后，向球囊内注入造影剂泛影葡胺3ml，后将导管上提至有阻力时停止，行X线摄片确定球囊的位置，示球囊位于第1胸椎水平(图2)。

图1 吞造影剂透视检查

图2 球囊造影定位失弛缓肌肉下缘

DOI:10.3969/j.issn.1001-1242.2017.09.016

1 山东大学齐鲁医院康复医学科，济南，250012；2 武警山东总队医院脊柱外科
作者简介：岳寿伟，男，主任医师，教授；收稿日期：2017-02-16

图3 CT扫描确认注射针头位置

患者仰卧位,沿球囊上缘进行CT平扫(德国西门子SOMATOM Emotion 16),扫描观察确定环咽肌平面后,在CT激光定位线处做标记,皮肤消毒,铺无菌巾,自颈动脉鞘-气管间进针,扫描确认针尖位置位于环咽肌内后,对环咽肌进行肉毒毒素注射(图3)。将注射用A型肉毒毒素100U(衡力,兰州生物制品研究所),用0.9%氯化钠稀释至2ml,分3点注射,每点15U,共45U,操作顺利,患者无特殊不适,安返病房,次日常规行吞咽功能训练。

3 结果

注射后第4日,患者可经口进食牛奶约20ml,无明显呛咳。第5日,可进水及糊状食物。第7日可正常进食,包括馒头、香蕉等,无明显呛咳。FOIS评定为7级,吞咽功能恢复正常,拔除胃管。由于患者已恢复进食,拒绝做吞咽造影剂透视检查,因此本例没有前后造影资料对比。注射后3个月随访,进食功能正常,无明显呛咳,体重较注射前增加7kg。

4 讨论

目前,临床上吞咽障碍的常用康复方法包括针对器官组织功能的基础训练、结合食物的进食训练,以及神经肌肉电刺激、球囊扩张术、环咽肌切开术、肉毒毒素注射等。吞咽训练及电刺激治疗可以改善吞咽相关器官组织的感觉及运动功能,改善喉上举、舌根上抬等。球囊扩张术可通过反复扩张环咽肌,降低环咽肌的静息压力,降低咽部收缩挤压食团进入食管的压力,增加环咽肌松弛时间及松弛程度,促进其正常开放及关闭,一定程度上缓解了吞咽困难问题[2—4]。环咽肌切断术是一种创伤性治疗,术中切断环咽肌纤维,主要应用于球囊扩张术治疗效果短暂、不能持久的患者,常见的并发症包括食管瘘、喉返神经损伤及肺炎[5]。环咽肌部位的肉毒毒素注射治疗,可通过降低环咽肌的张力来缓解环咽肌失弛缓症状,但实现注射时的精准定位难度大。本例患者行多次球囊扩张术治疗后,吞咽障碍症状无改善且拒绝行环咽肌切断术,鉴于此我们考虑行环咽肌肉毒毒素注射以缓解环咽肌失弛缓症状。

对于环咽肌肉毒毒素注射的定位方法,包括纤维喉镜联合肌电引导、CT引导等。1994年Schneider报道[6]在纤维喉镜联合肌电引导下肉毒毒素注射用于环咽肌功能障碍的治疗,此方法定位精确,但操作相对复杂。1997年,Atkinson等[7]曾报道3例CT引导下环咽肌肉毒毒素注射,但未使用球囊定位。一般认为,环咽肌位于咽与食管的交界处,两端向前附着于环状软骨,位于第6颈椎水平[15]。食管上括约肌由其后方毗邻的甲咽肌、环咽肌、食管上段环形肌组成,环咽肌附着于环状软骨形成"C"形肌带,是食管上括约肌的主要功能部分[8]。有报道认为,C4与C5椎间横断面环咽肌随喉上抬而上提,可见环咽肌开放情况[9]。本例中,我们观察到球囊上缘所在位置为第1胸椎上缘水平,所示患者狭窄部位位于梨状窦以下与第1胸椎上缘以上,下缘较文献所描述的环咽肌水平为低。肉毒毒素注射有效时间依赖于注射部位、剂量和疾病类型[10]。多数报道环咽肌注射剂量在5到50U之间,最多达100U[11—12]。本例患者年龄小,体重低,综合考虑安全及有效因素,选择45U的肉毒毒素剂量,且我们在行CT引导注射前先进行食管内球囊造影,二者共同定位,使注射定位更精确。

颈部结构复杂,食管位于气管与颈椎骨之间,毗邻颈总动脉、颈内静脉、迷走神经及甲状腺等重要组织,穿刺易造成损伤。实现精准定位,是减少意外损伤及穿刺成功的关键。本病例采用食管球囊造影联合CT引导进行肉毒毒素注射治疗,相比既往文献所报道的在纤维喉镜、肌电等引导下进行的肉毒毒素注射,创伤更小,定位精确,能有效缓解环咽肌痉挛,为临床治疗顽固性吞咽障碍提供了新的思路。

参考文献

[1] 窦祖林,吞咽障碍的评估与治疗[M].北京:人民卫生出版社,2011.1.
[2] Lan Y, Xu G, Dou Z, et al. Biomechanical changes in the pharynx and upper esophageal sphincter after modified balloon dilatation in brainstem stroke patients with dysphagia[J]. Neurogastroenterol Motil,2013, 25(12):e821—829.
[3] 兰月,窦祖林,万桂芳等: 球囊扩张术治疗脑干病变后环咽肌失弛缓症的疗效研究[J].中华物理医学与康复杂志, 2009, 31:835—838.
[4] 王珺,冯珍,徐华平.导尿管球囊扩张术治疗神经源性环咽肌失弛缓症的疗效观察[J].中华物理医学与康复杂志, 2013, 35(9):727—730.
[5] Nair SS, Surendaran AJ, Menon JR, et al.Persistent post-stroke dysphagia treated with cricopharyngeal myotomy[J]. Ann Indian Acad Neurol ,2016, 19(2):249—251.
[6] Schneider I, Thumfart WF, Pototschnig C,et al.Treatment of dysfunction of the cricopharyngeal muscle with botulinum A toxin: introduction of a new, noninvasive method[J]. Ann Otol Rhinol Laryngol, 1994, 103(1):31—35.
[7] Atkinson SI, Rees J. Botulinum toxin for cricopharyngeal

dysphagia: case reports of CT-guided injection[J].J Otolaryngol, 1997, 26(4):273—276.
[8] Goyal RK, Martin SB, Shapiro J, et al. The role of cricopharyngeus muscle in pharyngoesophageal disorders[J].Dysphagia,1993, 8(3):252—258.
[9] 罗素玲,陈伟雄,张剑利,等. 磁共振成像动态扫描对吞咽功能正常者咽收缩及环咽肌功能的研究[J].中华耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2016, 2(51):100—104.
[10] Terre R, Valles M, Panades A, et al.Long-lasting effect of a single botulinum toxin injection in the treatment of oropharyngeal dysphagia secondary to upper esophageal sphincter dysfunction: a pilot study[J]. Scand J Gastroenterol , 2008, 43(11):1296—1303.
[11] Kim DY, Park CI, Ohn SH, et al. Botulinum toxin type A for poststroke cricopharyngeal muscle dysfunction[J].Arch Phys Med Rehabil, 2006, 87(10):1346—1351.
[12] Kelly EA, Koszewski IJ, Jaradeh SS, et al. Botulinum toxin injection for the treatment of upper esophageal sphincter dysfunction[J]. Ann Otol Rhinol Laryngol, 2013, 122(2): 100—108.

·病例报告·

杆状体肌病合并重症肺炎患儿的亚急性期康复1例报告

陆 恺[1] 高 萱[2] 李 惠[1] 侯方华[1] 王素娟[1,3]

杆状体肌病(nemaline myopathy, NM)是一种罕见的先天性肌病。Shy等[1]于1963年首次报道并描述其发病特征,目前国内仅有个别报道。主要临床表现为自幼运动发育迟缓,儿童起病者具有松软儿综合征表现:四肢肌无力,近端重于远端,肌张力低下,累及颜面肌者出现狭长面容、缺乏表情,高腭弓,关节活动过度伸展等。2000年欧洲神经肌肉病委员会(ENMC)国际协作组将该病分为6型[2]:①先天性重症型;②先天性中间型;③先天性轻症(典型)型;④儿童起病型;⑤成年起病型;⑥其他形式的杆状体肌病。本文报道的是我院先天性中间型杆状体肌病的康复个案。

1 病例资料与治疗方法

患儿,女,3岁,5月龄时因"四肢松软,不能抬头,喂养困难"就诊。当时考虑患儿发育迟缓可能系肌病所致,但因家属未接受侵入性检查而未能确诊。在康复科接受PT、OT、口腔训练、电刺激及传统中医康复干预2年,患儿吞咽、语言及认知功能有显著改善,但运动功能改善甚微,不能竖头,不能坐起,完成精细运动时上肢抖动。为求进一步诊治,患儿于2015年12月22日接受肌肉活检,主要病理分析结果:肌纤维核内移、深染的杆状小体和以I型肌纤维组成比为主,符合先天性杆状体肌病病理特征。结合患儿四肢肌无力、肌张力低下等临床表现,诊断为先天性杆状体肌病,分型为先天性中间型。

患儿于2016年1月22日因"甲型流感、重症肺炎"入我院PICU治疗,机械辅助通气。3月12日生命体征稳定,但肢体活动少,吞咽无力,脱机困难,故行床旁康复评估与干预。3月15日进行床旁初评,当时患儿处机械通气下,精神萎靡,认知反应迟钝,自主呼吸运动差,四肢主动运动差。初评内容包括关节主动活动度测量与徒手肌力测试(manual muscle test,MMT)。此后定期复评,横向比较以观察康复疗效。

根据以上对患儿的观察及评估结果,与主诊医师和家人沟通后,制定出床旁康复目标:①维持剩余肌力和肌肉延展性,预防关节挛缩。②改善胸廓形态,促进呼吸功能。③提高吞咽肌肉协调性,改善自主吞咽能力。④出院前让家庭看护者能运用康复概念在家中照料患儿。具体实施的康复内容如下:

1.1 肌肉推拿、电刺激与关节挤压

1.1.1 推拿手法:使用滚法、掌根揉法等施于患儿四肢肌群,力度要渗透入肌肉层,重复施力从而起到疏通经络,滑利关节的作用。推至患儿肢体略微发红,微循环得以改善为止。

1.1.2 低频肌电刺激:电极片贴于肢体近端屈伸肌群,以及远端肢体伸展肌群,促进腕、指关节伸展及踝关节背屈。每天上下肢交替,每组肌群各刺激15min。

1.1.3 关节挤压手法:肩(髋)关节:使患儿手臂(大腿)略外展,双手分别握持患儿的肩与上臂(髋与大腿),双手协同操作使患儿肱骨头(股骨头)向内侧反复挤压其关节盂(髋臼)。肘(膝)关节:分别握持患儿的上臂(大腿)远端与前臂(小腿)

DOI:10.3969/j.issn.1001-1242.2017.09.017
1 复旦大学附属儿科医院康复科,上海,201102; 2 复旦大学附属儿科医院重症医学科; 3 通讯作者
作者简介:陆恺,男,康复治疗师; 收稿日期:2016-07-27