

❖ 妇产科影像学

Congenital omphalocele: Fetal MRI manifestations and postpartum closure type

GONG Shu¹, SHEN Min¹, XU Lu², ZHANG Li¹, JIANG Kuiming^{1*}

(1. Department of Radiology, 2. Department of Neonatal Surgery, Guangdong Women and Children Hospital, Guangzhou 511442, China)

[Abstract] **Objective** To observe the relationships of fetal MRI manifestations and postpartum closure type of congenital omphalocele (CO). **Methods** Data of 10 newborns with CO were retrospectively analyzed. The newborns were divided into one-stage group ($n=5$, one-stage surgical suture) and conservative group ($n=5$, conservative treatment with capsular suspension) according to the postnatal treatment plan. The defect diameter (DD) of abdominal wall, omphalocele volume (OV) and viscerum-abdominal disproportion ratio (OV/APV) on fetal MRI were measured. The intra-observer consistencies of the above indicators were evaluated using Bland-Altman plot. The basic data of newborns and fetal MRI indicators were compared between groups. **Results** There was no significant difference of the gestational age (MR examination), birth gestational age nor birth weight between groups (all $P>0.05$). The duration of initial hospitalization after birth in conservative group was longer than that in first-stage group ($P<0.05$). Fetal MRI showed omphalocele presenting as outward bulge at the site of abdominal wall defect, which might included hepatocele, splenocele, gastrocele, gallocele and enterocoele, and umbilical cord inserted at the same site. In first-stage group, fetal MRI showed hepatocele and enterocoele in 3 cases, gastrocele and gallocele each in 1 case. In conservative group, all 5 cases were found with hepatocele, while 4 with enterocoele, 3 with gastrocele and 3 with gallocele, 2 with splenocele. Bland-Altman plot showed that the measured results of DD, OV and OV/APV of CO on fetal MRI had good intra-observer consistencies. OV/APV of the first stage group was lower than that of the conservative group ($P<0.05$). There was no significant difference of DD and OV on fetal MRI between groups (both $P>0.05$). **Conclusion** Fetal MRI of CO manifested as outward bulge at the defect of abdominal wall with various internal structures. No liver eviscerated and small OV/APV indicated primarily closure could be performed after birth, while splenocele, gastrocele and gallocele should be treated conservatively, especially splenocele.

[Keywords] fetus; congenital omphalocele; magnetic resonance imaging

DOI:10.13929/j.issn.1003-3289.2022.11.019

先天性脐膨出: 产前 MRI 表现与出生后闭合方式

龚舒¹, 沈敏¹, 许露², 张丽¹, 江魁明^{1*}

(1. 广东省妇幼保健院放射科, 2. 新生儿外科, 广东 广州 511442)

[摘要] **目的** 观察先天性脐膨出(CO)胎儿 MRI 表现与出生后闭合方式的关系。**方法** 回顾性分析 10 例 CO, 根据出生后治疗方案分为一期组($n=5$, 一期手术缝合)及保守组($n=5$, 囊膜悬吊保守治疗); 基于胎儿 MRI 测量腹壁缺损直径(DD)、膨出物体积(OV)及脏腹失调比(OV/APV), 以 Bland-Altman 图评价观察者间测量结果的一致性, 比较组间基本资料及 MRI 指标差异。**结果** 2 组患儿接受 MR 检查时胎龄、出生胎龄及体质量差异均无统计学意义(P 均 >0.05); 保守组出生后初次住院时间长于一期组($P<0.05$)。10 例 CO 胎儿 MRI 均见腹内结构由腹壁缺损处向外膨出, 其内可含多

[基金项目] 广州市科学研究计划项目(201804010048)。

[第一作者] 龚舒(1991—), 女, 江西上饶人, 硕士, 主治医师。研究方向: 妇产科及儿科影像。E-mail: gongshu0924@163.com

[通信作者] 江魁明, 广东省妇幼保健院放射科, 511442。E-mail: kmjiang65@sina.com

[收稿日期] 2022-05-26 **[修回日期]** 2022-08-03

种结构,脐带由此插入。胎儿期 MRI 显示,一期组 5 例中,肝脏及肠管膨出各 3 例,胃及胆囊膨出各 1 例;保守组 5 例均见肝脏膨出,4 例肠管膨出,胃及胆囊膨出各 3 例,脾脏膨出 2 例。Bland-Altman 图示基于胎儿 MRI 测量 DD、OV 及 OV/APV 结果的观察者间一致性较好,一期组 OV/APV 小于保守组($P<0.05$),而组间 DD 及 OV 差异无统计学意义(P 均 >0.05)。结论 CO 胎儿 MRI 表现为腹内结构由腹壁缺损处向外膨出,其内可含多种结构;无肝脏膨出或 OV/APV 较小提示出生后可行一期手术治疗,对脾脏、胃脏或胆囊膨出,尤其脾脏膨出者则宜采用保守治疗。

[关键词] 胎儿;先天性脐膨出;磁共振成像

[中图分类号] R714.53; R445.2 [文献标识码] A [文章编号] 1003-3289(2022)11-1680-05

我国先天性脐膨出(congenital omphalocele, CO)发病率约 0.82/10 000^[1],表现为前腹壁缺损畸形,腹部脏器经缺损处向外膨出,其表面覆盖由腹膜、华通胶及羊膜构成的囊膜。超声为 CO 首选影像学检查方法^[2],但存在误诊可能^[3]。目前临床多根据膨出程度(小型及巨型)、膜完整性、伴发畸形和心肺功能等拟定治疗方案,缺乏统一标准^[4]。既往研究^[5]通过超声测量脏腹失调比预测可否于出生后行一期修补术治疗 CO,存在一定局限性。近来 MRI 已用于诊断 CO^[6],且发现 MRI 所测 CO 胎儿肺体积与其预后相关^[7]。本研究观察 CO 患儿胎儿期 MRI 表现与出生后闭合方式的关系,以期临床选择 CO 治疗方式提供参考。

1 资料与方法

1.1 研究对象 回顾性分析 2014 年 1 月—2022 年 5 月广东省妇幼保健院 10 例 CO 新生儿,男 8 例、女 2 例,均经胎儿 MRI 疑诊 CO;接受检查时孕妇年龄 20~40 岁、中位年龄 30 岁,孕 21~38 周、中位孕周 28 周;胎儿基因筛查 21 号、18 号、13 号三体均为低风险;4 胎经剖宫产出生、6 胎顺产;出生后 4 例需吸氧支持,7 例合并其他异常。排除标准:①监护人选择放弃治疗;②胎儿 MRI 质量不佳。根据出生后治疗方案分为一期组 5 例,男 4 例、女 1 例,均接受一期手术缝合且未吸氧,4 例合并其他异常(室管膜下囊肿、侧脑室增宽、三尖瓣反流、肾积水);保守组 5 例,男 4 例、女 1 例,均接受囊膜悬吊保守治疗,其中 4 例需吸氧支持,3 例合并其他异常(肺动脉高压、下腔静脉畸形、鼻孔畸形)。

1.2 仪器与方法 采用 GE Brivo 1.5T 超导型 MR 扫描仪,8 通道体部线圈行胎儿 MR 检查。嘱孕妇仰卧,足先进,平静呼吸,采集胎儿轴位、矢状位及冠状位 MRI,扫描范围主要包括胎儿腹盆部及膨出物;参数:快速稳态梯度回波(fast imaging employing steady state acquisition, FIESTA)序列,TR 3.8 ms,TE

1.8 ms,矩阵 256×160 ,FOV $42 \text{ cm} \times 42 \text{ cm}$,FA 60° ,层厚 4 mm;单次激发快速自旋回波(single shot fast spin echo, SSFSE)序列,TR 4 000 ms,TE 82.9 ms,矩阵 256×192 ,FOV $42 \text{ cm} \times 42 \text{ cm}$,层厚 4 mm;T1WI,TR 10.2 ms,TE 4.2 ms,FOV $42 \text{ cm} \times 42 \text{ cm}$,层厚 4 mm。

1.3 图像分析 由 2 名具有 10 年以上工作经验、且不知晓产后情况下的胎儿 MRI 诊断医师利用图像存储与传输系统阅片观察胎儿 MRI 中囊膜是否完整、有无脏器膨出;于矢状位缺损最大层面测量胎儿腹壁缺损直径(defect diameter, DD);结合冠状位及矢状位图,于每层轴位图像上手动勾画膨出区域(不包括脐带结构及腹腔积液),乘以对应序列层厚,由此得出膨出体积(omphalocele volume, OV);测量腹盆体积(abdominal-pelvic volume, APV),其上界为膈肌下缘、下界为耻骨联合下缘与骶尾关节之间的连线,后界为脊柱前方,不包括肌肉及皮下脂肪层;脏腹失调比=OV/APV(图 1、2)。以 2 名医师测值的平均值作为结果。

1.4 统计学分析 采用 SPSS 22.0 及 R 4.1.2 软件。以中位数(上下四分位数)表示不符合正态分布的计量资料,以 Mann-Whitney U 检验比较组间各指标差异。采用 Bland-Altman 图评价观察者间 CO 胎儿 MRI 指标测量结果的一致性。 $P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

2 组患儿接受 MR 检查时的胎龄、出生胎龄及体质质量差异均无统计学意义(P 均 >0.05);保守组出生后初次住院时间长于一期组($P<0.05$),见表 1。

2.1 胎儿 MRI 表现 10 例 CO 患儿胎儿期 MRI 均见腹部脏器于腹壁缺损处向外膨凸,脐带于该处插入;未见囊膜破裂征象;一期组 5 例均见脏器膨出,2 例可见囊膜;保守组 5 例均见脏器膨出,3 例可见囊膜(图 3、表 2)。

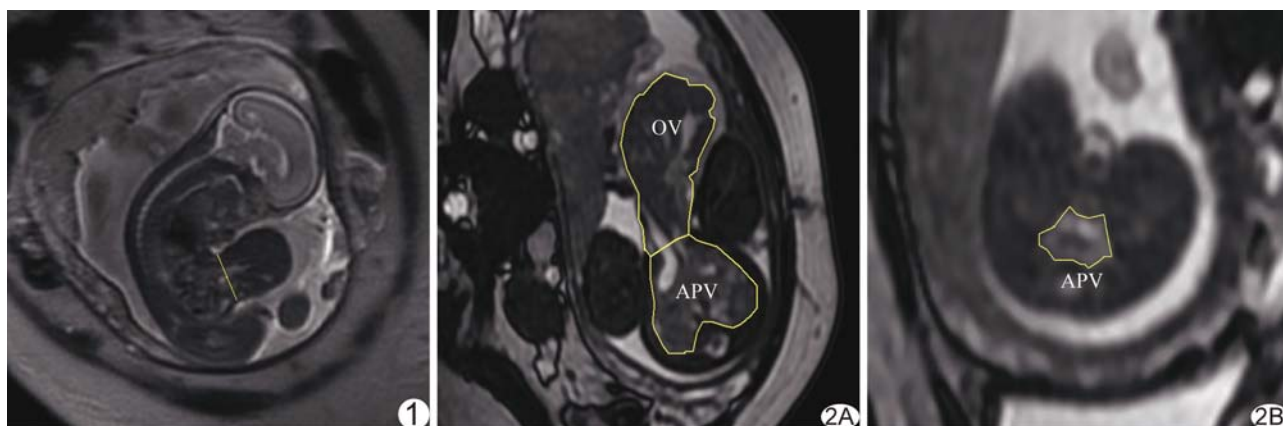


图 1 保守组 CO 患儿,于胎龄 25 周时 MR 矢状位 SSFSE 图示缺损最大层面测量 DD(黄线)

图 2 保守组 CO 患儿,于胎龄 32 周时轴位 FIESTA 图中测量 OV(A)及 APV(B)

表 1 10 例 CO 患儿出生前后基本资料比较

组别	MR 检查时胎龄(周)	出生胎龄(周)	出生体质量(kg)	初次住院时间(日)
一期组(n=5)	28.0(27.0,31.0)	38.0(37.0,40.0)	3.00(2.82,3.14)	12.0(12.0,18.0)
保守组(n=5)	28.0(26.0,32.0)	40.0(38.0,41.0)	3.20(2.26,3.60)	41.0(32.0,58.0)
Z 值	-0.210	-0.534	-0.313	-2.619
P 值	0.889	0.643	0.841	0.008

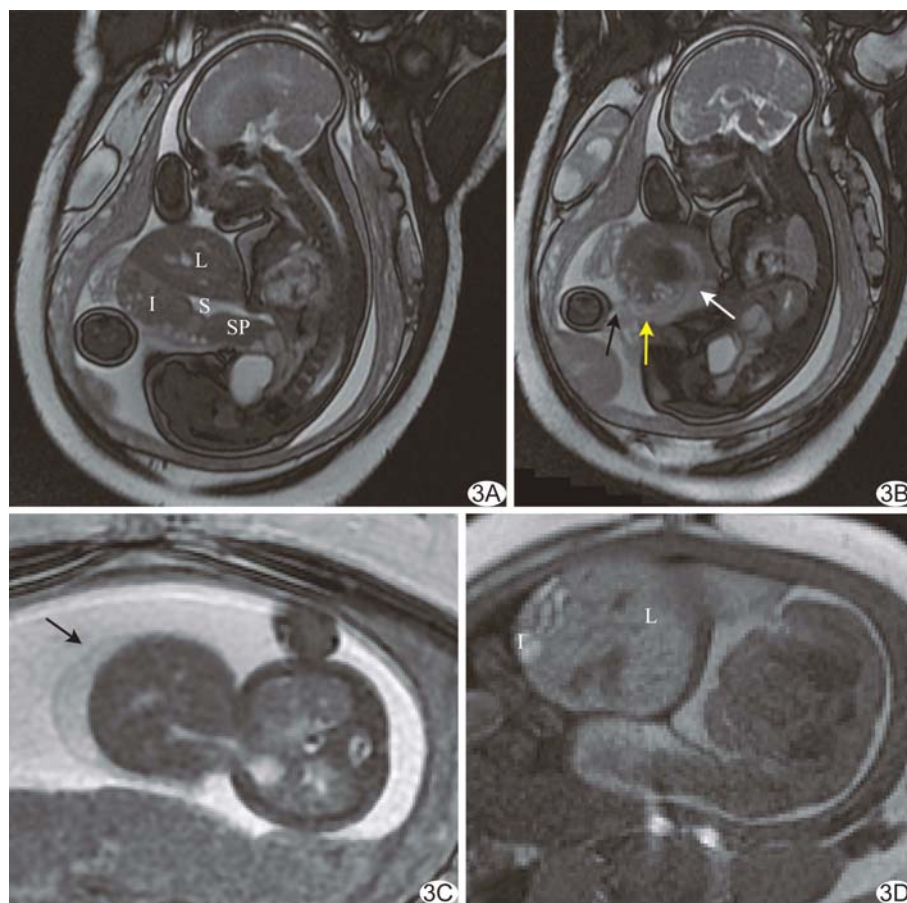


图 3 保守组 CO 患儿,胎龄 38 周时 MRI A. 矢状位 FIESTA 图示胎儿肝脏(L)、肠管(I)、胃脏(S)及脾脏(SP)膨出; B. 矢状位 FIESTA 图示静脉导管(白箭)及脐静脉(黑箭)呈稍高信号,脐带(黄箭)于缺损处插入腹壁; C. 轴位 FIESTA 图示囊膜(箭)呈条状低信号; D. 轴位 T1WI 示胎儿肝脏(L)及肠管(I)膨出,肠管内胎粪呈高信号

2.2 胎儿 MRI 指标 Bland-Altman 图示观察者间基于胎儿 MRI 测量 DD、OV 及 OV/APV 结果的一致性较好;DD 测量差异平均值为 -0.041 cm, 95% 一致性界限 (limits of agreement, LoA) 为 $-0.407 \sim 0.325$ cm; OV 测量差异平均值为 0.476 cm³, 95% LoA 为 $-2.118 \sim 3.070$ cm³; OV/APV 测量差异平均值为 0.894% , 95% LoA 为 $-1.042\% \sim 2.830\%$ (图 4)。一期组 OV/APV 小于保守组 ($P < 0.05$); 组间 DD 及 OV 差异无统计学意义 (P 均 > 0.05), 见表 3。

3 讨论

产前 MRI 诊断胎儿 CO 时, 主要观察如下内容: ①通过观察静脉导管及脐静脉走行判断脐带插入位置及其与腹壁缺损的关系, 静脉导管及脐静脉 SSFSE 呈流空信号, FIESTA 呈稍高信号; ②囊膜完整性, 若囊膜破裂则不能采用保守治疗^[8]; 本研究 5 例 CO 胎儿期存在少量腹腔积液, 产

表 2 10 例 CO 患儿胎儿期 MRI 所示脏器膨出(胎)

组别	肝脏	胆囊	脾脏	胃脏	肠管
一期组(n=5)	3	1	0	1	3
保守组(n=5)	5	3	2	3	4

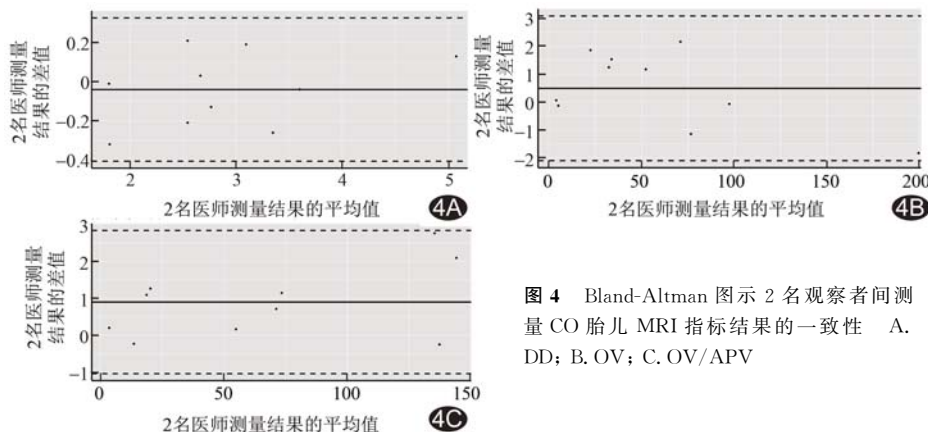


图 4 Bland-Altman 图示 2 名观察者间测量 CO 胎儿 MRI 指标结果的一致性 A. DD; B. OV; C. OV/APV

表 3 10 例 CO 患儿胎儿期 MRI 指标比较

组别	DD(cm)	OV(cm ³)	OV/APV(%)
一期组(n=5)	2.55(1.81, 3.10)	22.25(4.98, 33.78)	18.61(13.50, 20.19)
保守组(n=5)	2.77(2.67, 3.35)	70.92(52.20, 97.26)	135.44(73.50, 137.37)
Z 值	-0.838	-1.776	-2.611
P 值	0.452	0.095	0.008

前 MRI 清晰显示囊膜, 表现为 SSFSE 及 FIESTA 呈条状低信号, 另 5 胎未能直接观察到囊膜, 但根据疝出的肠管并非自由漂浮于羊水中而间接判断其囊膜完整; ③膨出内容物, 多为肝脏及肠管, 也可见胃脏、胆囊及脾脏等结构, 多参数 MR 成像有助于加以辨识, 如肠内胎粪呈 T1WI 高信号, 胃脏、胆囊均呈 SSFSE 及 FIESTA 高信号和 T1WI 低信号。

评估一期手术的可行性对于 CO 患儿预后至关重要。本研究一期组均通过手术同时实现切除囊膜、复位膨出脏器并闭合腹腔; 保守治疗则通过悬吊囊膜使其上皮化并逐步收缩, 促使囊内结构回纳于腹腔。一期手术治疗较保守治疗住院周期短, 并能缓解喂养问题、降低囊膜破裂及感染风险^[9-10], 但对部分 CO 患儿并不适用, 如强行手术易影响其肺氧合功能^[11], 且一旦发生腹腔间隙综合征, 可致急性肾衰竭、呼吸衰竭甚至威胁生命。CO 患儿无肝膨出提示预后相对较好^[12]; 而肝脏、胃脏及胆囊膨出 CO 患儿出生后接受保守治疗及需要吸氧者较多, 可能因脏器膨出程度与肺功能不全相关, 导致无法采用一期手术。本研究 2 例无肝脏膨出 CO 患儿均于出生后接受一期手术, 预后良好; 对 1 例肝脏、胃脏与脾脏膨出 CO 患儿合并肺

动脉高压采用保守治疗, 2 例脾脏膨出 CO 患儿予保守治疗及吸氧支持, 与 PARTRIDGE 等^[13-14]的结论相符合。

既往研究^[15]发现 CO 患儿 DD 与可否行一期手术相关。本研究针对胎儿 MRI 所测 DD 及 OV 组间未见显著差异, 原因可能在于胎儿在羊水中所受重力与出生后不同, 且 DD 及 OV 可随胎龄增加而变化, 相应指标与出生后并不完全相同, 也可能与本研究样本量小有关, 有待进一步观察。此外, 本研究以 OV/APV 计算 CO 胎儿脏腹失调比, 以反映膨出程度及腹腔发育情况, 并在一定程度上降低胎儿生长发育所带来的影响, 发现一期组 OV/APV 小于保守组, 提示胎儿期该指标可用于评估出生后实施一期手术的可行性。

综上, CO 胎儿 MRI 表现为腹部脏器于腹壁缺损处向外膨凸, 其内可含多种结构; 无肝脏膨出或 OV/APV 较小提示出生后可采用一期手术治疗; 而对脾脏、胃脏或胆囊膨出者更宜采取保守治疗, 尤其是脾脏膨出。但本研究为回顾性分析, 样本量小, 且仅针对单次胎儿期 MRI, 未能观察各指标随胎龄发生的变化, 亦未对产后 MRI 所见及基因检测结果进行分析, 有待后续完善。

[参考文献]

- [1] 全国妇幼卫生监测办公室. 全国妇幼卫生监测及年报通讯[EB/OL]. (2021-06-08) [2022-05-26]. <http://www.mchscn.cn/ViewByStages-34/633.html>.
- [2] 杨鑫, 李恩琦, 刘焕玲, 等. 孕早期超声测量胎儿腹主动脉与肠系膜上动脉夹角用于预测先天性膈疝[J]. 中国医学影像技术, 2022, 38(1): 120-123.
- [3] 赵新美, 吴春燕, 陈雷. 彩色多普勒超声产前诊断胎儿前腹壁畸形[J]. 中国医学影像技术, 2011, 27(1): 147-150.
- [4] 钊金法. 新生儿巨型脐膨出的治疗策略[J]. 临床小儿外科杂志, 2020, 19(4): 292-296.
- [5] PETERS N C J, HIJKOOP A, LECHNER R L, et al. The validity of the viscerio-abdominal disproportion ratio for type of surgical closure in all fetuses with an omphalocele[J]. Prenat

- Diagn, 2019, 39(12):1070-1079.
- [6] VICTORIA T, ANDRONIKOU S, BOWEN D, et al. Fetal anterior abdominal wall defects: Prenatal imaging by magnetic resonance imaging[J]. *Pediatr Radiol*, 2018, 48(4):499-512.
- [7] CHOCKV Y, DAVIS A S, CHO S, et al. Prenatally diagnosed omphalocele: Characteristics associated with adverse neonatal outcomes[J]. *J Perinatol*, 2019, 39(8):1111-1117.
- [8] SUGANDHI N, SAHA M, BHATNAGAR V, et al. Repair of ruptured omphalocele sac in the neonatal period and beyond[J]. *J Indian Assoc Pediatr Surg*, 2020, 25(1):46-48.
- [9] BARRIOS SANJUANELO A, ABELLÓ MUNARRIZ C, CARDONA-ARIAS J A. Systematic review of mortality associated with neonatal primary staged closure of giant omphalocele[J]. *J Pediatr Surg*, 2021, 56(4):678-685.
- [10] 李伟, 杨继鑫, 罗意革, 等. 大龄儿巨型脐膨出一例并文献复习[J]. *中华小儿外科杂志*, 2019, 40(3):228-232.
- [11] DUGGAN E, PULIGANDLA P S. Respiratory disorders in patients with omphalocele[J]. *Semin Pediatr Surg*, 2019, 28(2):115-117.
- [12] PETERS N C, VISSERT HOOFT M E, EGGINK A J, et al. Prenatal prediction of the type of omphalocele closure by different medical consultants[J]. *Fetal Diagn Ther*, 2016, 39(1):40-49.
- [13] PARTRIDGE E A, HANNA B D, PANITCH H B, et al. Pulmonary hypertension in giant omphalocele infants[J]. *J Pediatr Surg*, 2014, 49(12):1767-1770.
- [14] HUTSON S, BAERG J, DEMING D, et al. High prevalence of pulmonary hypertension complicates the care of infants with omphalocele[J]. *Neonatology*, 2017, 112(3):281-286.
- [15] RAYMOND S L, DOWNARD C D, St PETER S D, et al. Outcomes in omphalocele correlate with size of defect[J]. *J Pediatr Surg*, 2019, 54(8):1546-1550.

严正声明

近日有不法分子冒充我社编辑, 诱骗作者投稿、缴费等。《中国医学影像技术》期刊社有限公司两刊信息为:

《中国医学影像技术》 <http://www.cjmit.com> 《中国介入影像与治疗学》 <http://www.cjiit.com>

银行账户名 《中国医学影像技术》期刊社有限公司

开户行 招商银行北京分行清华园支行

账号 110907929010201

支付宝账号 cjmit@mail.ioa.ac.cn(账户名同银行账户名)

作者在投稿、缴费时, 请注明稿号、姓名; 敬请广大作者、读者相互转告, 提高警惕、谨防上当受骗。如有疑问请致电 010-82547901/2/3 或发邮件至 cjmit@mail.ioa.ac.cn。

特此声明!

《中国医学影像技术》期刊社有限公司

2022 年 11 月