



电子、语音版

·临床研究·

颅骨成形术后弥漫性脑肿胀1例及文献复习

凌酉, 肖仕印, 杨晨, 彭飞, 翁育浩, 方泽鲁, 曹国彬
广州医科大学附属第二医院神经外科, 广东 广州 510260

摘要: 报告1例骨成形术后弥漫性脑肿胀(MBSC)患者的临床资料。患者男性, 38岁, 颅骨成形术后短时间内出现癫痫发作及瞳孔改变, 头颅CT提示左侧大脑半球明显肿胀, 经脱水、抗癫痫等治疗后, 患者仍在术后72 h内死亡。并复习相关文献, 探讨MBSC的临床特点、发病机制及预防措施。

[国际神经病学神经外科学杂志, 2022, 49(5): 51–54]

关键词: 弥漫性脑肿胀; 颅骨成形术; 颅骨凹陷; 术后并发症

中图分类号: R651.11

DOI: 10.16636/j.cnki.jinn.1673-2642.2022.05.011

Massive brain swelling after cranioplasty: A case report and literature review

LING You, XIAO Shi-Yin, YANG Chen, PENG Fei, WENG Yu-Hao, FANG Ze-Lu, CAO Guo-Bin

Department of Neurosurgery, The Second Affiliated Hospital of Guangzhou Medical University, Guangzhou Guangdong 510260, China

Corresponding author: CAO Guo-Bin. Email: Caogbin@126.com

Abstract: A report was performed for the clinical data of one patient with massive brain swelling after cranioplasty (MBSC). This male patient, aged 38 years, showed seizures and pupillary changes within a short period of time after cranioplasty, and cranial CT revealed significant swelling of the left cerebral hemisphere. The patient died within 72 hours after surgery even after dehydration and antiepileptic treatment. And after the report a literature review was conducted, to investigate the clinical features, pathogenesis, and preventive measures of MBSC.

[Journal of International Neurology and Neurosurgery, 2022, 49(5): 51–54]

Keywords: massive brain swelling; cranioplasty; cranial depression; postoperative complications

颅骨成形术后弥漫性脑肿胀(massive brain swelling after cranioplasty, MBSC)是一种罕见, 但病情进展迅速、死亡率高达88%的手术并发症^[1], 其发病机制和防治手段仍不清楚。现笔者回顾1例颅骨成形术后出现弥漫性脑肿胀患者的病历资料, 并复习相关文献, 期许为此类并发症的预防诊治提供经验借鉴。

1 病例资料

患者男, 38岁, 因“医源性颅骨缺损1年余, 返院行颅骨修补”于2021年2月入院。患者16个月前因“颅脑外伤”在外院行“右侧额颞顶及左枕部去骨瓣减压术”。11个月前因脑积水首次来广州医科大学附属第二医院就诊, 并行第1次“侧脑室腹腔分流术”。然而患者在术后第

5天开始出现高热, 脑脊液培养提示耐甲氧西林凝固酶阴性葡萄球菌感染。虽然根据药敏结果给予敏感抗生素治疗, 但仍在9个月前因颅内感染拔除分流管, 并行三脑室底造瘘术。彻底控制颅内感染后, 为控制脑积水, 患者于5个月前行第2次“侧脑室腹腔分流术”, 术后患者转康复医院继续治疗。患者本次入院时查体: 格拉斯哥昏迷评分法(GCS)评分15分, 精神状态良好, 对答切题, 右侧额颞顶骨窗明显凹陷(图1中a、b)。双侧瞳孔等圆等大, 直径约3 mm, 对光反射灵敏, 眼球活动自如。右上肢肌力IV级, 右下肢肌力III级, 左侧肢体肌力II级, 生理反射正常, 病理反射未引出。

患者于2021年3月4日在全身麻醉(全麻)下行双侧

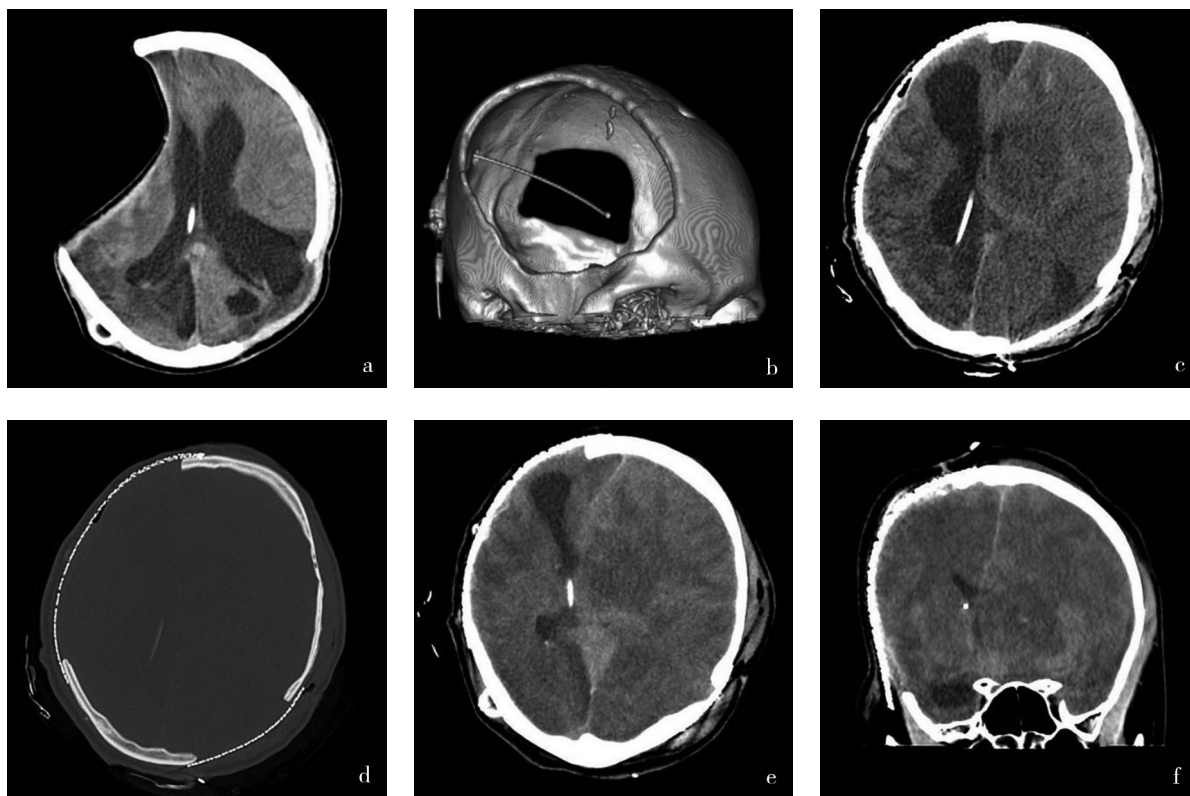
收稿日期: 2021-12-15; 修回日期: 2022-05-05

作者简介: 凌酉(1993—), 男, 硕士研究生, 主要从事脑血管病和脑外伤的临床研究。

通信作者: 曹国彬(1970—), 男, 主任医师、副教授、硕士生导师, 主要从事脑肿瘤及脑出血的临床与基础研究。Email: Caogbin@126.com。

颅骨缺损成形术,全麻药物选取七氟醚、瑞芬太尼、丙泊酚、依托咪酯、顺式阿曲库铵等。先取平卧位行右侧额颞顶颅骨缺损成形,分离皮瓣过程中硬脑膜无破损,放置三维塑形钛网并调整位置满意后用钛钉固定。术中悬吊硬脑膜2针,放置皮下引流管1条,并开放自然引流。缝合头皮后,再取右侧卧位修补左枕骨窗,重新消毒铺巾,并以同样的方法放置钛网,见硬脑膜与钛网贴敷良好,遂未悬吊硬脑膜,未放置引流管。术毕后,引流管改为接二分之一负压吸引。手术及麻醉过程顺利,术中出血约100 mL,患者术后安返神经外科重症监护病房(NSICU)复苏。

患者术后1.5 h开始反复出现右侧颜面部、右侧肢体不自主抽动,引流管引出淡红色血性液体约70 mL,予丙戊酸钠、地西泮等药物处理后抽动逐渐停止。然而,患者术后3 h突然出现血压进行性升高至173/110 mmHg,心率达123次/min。查体:双侧瞳孔不等,左侧瞳孔2 mm,右侧瞳孔1.5 mm,直接与间接对光反射迟钝。复查头颅CT提示左侧大脑半球肿胀,侧脑室明显受压变窄,中线右移(图1中c、d、e、f)。建议立即行左侧去骨瓣减压并去除右侧钛网,但患者家属拒绝手术。遗憾的是,尽管予脱水、抗癫痫、改善循环等积极处理,患者仍在术后72 h内死亡。



a、b:术前头颅CT; c、d:术后3 h头颅CT; e、f:术后7 h头颅CT

图1 患者术前、术后影像学资料

2 讨论

颅骨成形术可以改善脑脊液流体动力学、颅内血流状况和脑顺应性,是神经外科最常见的手术之一^[2]。尽管颅骨成形术被认为是相对安全的手术,却仍有11.3%~42.3%的患者术后出现癫痫、感染、脑积水、出血等并发症^[3-4]。MBSC是一种罕见的并发症,发病率为2.2%~7%^[5]。查阅相关文献,可知国内外有不超过30例关于MBSC的文献报道^[1]。见表1。

MBSC的临床症状主要为术后短时间内出现意识障碍、脑干功能及循环障碍或全身性癫痫发作,多数以瞳孔改变为首发表现,其次为癫痫发作。CT可见大脑半球的

弥漫性肿胀,近半数表现为双侧半球肿胀,少数病例可合并脑内散在出血^[5, 16]。血管成像可见颅内血流缓慢^[11],严重者静脉窦系统可不显影^[10, 18]。

MBSC的病理生理机制极其复杂。Van Roost等^[23]将其定义为假性缺血缺氧性脑肿胀(pseudohypoxic brain swelling, PHBS),他们认为在排除缺血缺氧性脑肿胀后,快速、过度地引流脑脊液和随后出现的继发性低颅压可能导致术后弥漫性脑肿胀。事实上,大面积颅骨缺损患者的脑顺应性下降,过度引流可能导致颅内压急性下降,随后大脑快速膨胀扩张,从而损害脑血管自动调节功能并导致脑组织再灌注损伤^[8]。Honeybul^[24]认为严重脑损

表 1 国内外关于颅骨成形术后弥漫性脑肿胀的文献回顾								
作者	年龄/岁	性别	术前皮瓣下沉	手术时机/月	术后引流	主要临床表现	头颅CT表现	结局
Alexander I. Evins ^[6]	46	男	无	24	有	瞳孔改变	弥漫性脑肿胀	死亡
Rohan Chitale ^[7]	64	男	无	12	有	癫痫	弥漫性脑肿胀, 基底池闭塞	死亡
Gwang Soo Lee ^[8]	50	女	有	2	有	癫痫	弥漫性脑肿胀	存活
Hyun-Soo Moon ^[9]	22	男	有	4	有	心搏骤停、四肢强直	弥漫性脑肿胀	存活
Erwin Mangubat ^[10]	14	女	有	2	—	意识改变、血压下降	弥漫性脑肿胀, 脑室扩大	死亡
Gill E. Svirin ^[11]	22	男	有	9	有	瞳孔改变	弥漫性脑肿胀, 对侧为主	死亡
	14	男	有	10	有	呼吸骤停、瞳孔改变	弥漫性脑肿胀, 散在出血	死亡
	28	男	有	17	有	瞳孔改变	对侧脑肿胀	死亡
	24	男	有	3	有	呕吐、头痛、瞳孔改变	对侧脑肿胀, 同侧硬膜外血肿	死亡
S. Honeybul ^[5]	25	女	有	11	有	反应迟钝、瞳孔改变	弥漫性脑肿胀	死亡
	74	女	有	2	有	癫痫	弥漫性脑肿胀, 皮质出血	死亡
	41	女	无	12	有	癫痫	弥漫性脑肿胀	死亡
Akihito Kato ^[12]	84	男	有	2	有	—	同侧脑肿胀, 脑室出血	存活
Yuta Kaneshiro ^[13]	64	男	有	1	有	意识障碍, 瞳孔改变	弥漫性脑肿胀	死亡
Chen Bo ^[14]	24	男	有	4.5	—	意识障碍、瞳孔改变	同侧脑肿胀	存活
Shen Liang ^[15]	51	男	有	6	有	癫痫、意识障碍	同侧脑肿胀伴散在出血	死亡
Masashi Nomura ^[16]	43	男	无	1.5	有	—	弥漫性脑肿胀	死亡
	73	男	无	1.5	有	瞳孔改变	对侧脑肿胀伴斑点状出血	死亡
Zhang Xiao-yang ^[17]	40	男	无	2	有	呕吐、意识障碍、瞳孔改变	同侧脑肿胀, 散在出血	存活
Yu Shimizu ^[18]	34	女	无	3	有	意识障碍	同侧弥漫性脑肿胀	死亡
Andrius Anuzis ^[19]	41	女	有	38	有	瞳孔改变	对侧脑肿胀和小脑肿胀	死亡
	47	女	无	22	有	瞳孔改变	对侧脑肿胀	死亡
许明伟 ^[20]	29	男	有	4	有	癫痫、瞳孔改变	弥漫性脑肿胀	死亡
任祎 ^[21]	62	女	有	4	有	癫痫	同侧脑肿胀	存活
庞鸣琰 ^[22]	43	女	无	1	有	瞳孔改变	对侧脑肿胀	死亡

伤患者的脑血管压力自动调节功能受损,以至于无法通过及时收缩脑血管、调整脑血流来适应脑灌注压的变化。Svirin^[11]报道的4例颅骨成形术后弥漫性脑肿胀患者术前均有骨窗明显凹陷,他认为,MBSC的发生遵从Monro-Kellie假说。颅骨成形术后的脑组织由于瞬间失去大气压的压迫,迅速向颅骨成形部位转移,从而引发致命的血管舒缩反应。Chen等^[14]通过MRA、MRV首次证实同侧颈内动脉(ICA)闭塞等血管病变通过限制血液回流引起血流动力学改变和颅内压变化,进而诱发弥漫性脑肿胀。Nomura等^[16]对2例颅骨成形术后弥漫性脑肿胀患者的尸检中,也发现了深静脉窦血栓或静脉充血。

综合文献复习,笔者认为MBSC的根本病因是颅骨成形术后颅内压力骤变,脑组织强行充满颅腔触发的一系列

病理变化,脑血管自动调节功能障碍、脑脊液耗竭、癫痫发作等因素可能通过加剧颅内压的改变参与MBSC的发生过程。本例患者颅骨缺陷时间窗长达16个月,术前骨窗凹陷明显,且有多次颅脑手术史,考虑患者的脑组织顺应性差。虽然术中未发现硬脑膜破损,但修补完右侧骨窗后立即翻转患者体位后,脑组织极有可能因重力的持续作用,主动下移至右侧颅骨成形处形成反常性脑疝。术后短期内引流大量血性渗出液,也促进了MBSC的发展。需要深刻反思的是,术前应对该患者完善CT灌注、血管成像等相关检查,充分衡量患者行左枕颅骨缺损修补的获益与风险。

MBSC的预防治疗措施也众说纷纭。Liao^[25]建议脑脊液分流术后骨窗严重凹陷的患者,在行颅骨成形术前用动脉瘤夹临时阻断分流管,促进皮瓣回弹。Robles^[1]提

出术前皮瓣下沉分级系统,评估大气压对颅内压、脑组织偏斜程度的影响,避免脑组织由于术后颅内压骤变出现灌注损伤。对于术中的处理,Fan^[26]提倡严密缝合硬脑膜,尽可能维持颅内液体平衡,避免持续负压吸引或脑脊液过度流出,防止体位性低颅压或颅内压骤变。Anuzis^[19]则不建议在术中放置负压吸引管,即使放置,也应该尽量避免全负压吸引。此外,还需要结合患者的实际情况,选择合适的手术时机^[3]。

综上所述,MBSC多在颅骨成形术后复苏期间发生,各种原因导致的颅内压力骤变可能是其根本病因。术者在术中应尽量避免脑脊液过度、过快地流失,防止颅内压力骤变,以免促发MBSC。而MBSC起病突然,进展迅速,预后不良,患者一旦发病,需及时采取紧急措施抢救患者生命,必要时需再次去骨瓣减压。

参 考 文 献

- [1] ROBLES LA, CUEVAS-SOLÓRZANO A. Massive brain swelling and death after cranioplasty: a systematic review[J]. *World Neurosurg*, 2018, 111: 99-108.
- [2] ALKHAIBARY A, ALHARBI A, ALNEFAIE N, et al. Cranioplasty: a comprehensive review of the history, materials, surgical aspects, and complications[J]. *World Neurosurg*, 2020, 139: 445-452.
- [3] 袁雪松,包卿,魏文锋,等. 导致颅骨修补术后并发症的多因素风险分析[J]. *国际神经病学神经外科学杂志*, 2017, 44(3): 238-240.
- [4] SHEPETOVSKY D, MEZZINI G, MAGRASSI L. Complications of cranioplasty in relationship to traumatic brain injury: a systematic review and meta-analysis[J]. *Neurosurg Rev*, 2021, 44(6): 3125-3142.
- [5] HONEYBUL S, DAMODARAN O, LIND CRP, et al. Malignant cerebral swelling following cranioplasty[J]. *J Clin Neurosci*, 2016, 29: 3-6.
- [6] EVINS AI, BOERIS D, BURRELL JC, et al. Postoperative intracranial hypotension-associated venous congestion: case report and literature review[J]. *Clin Neurol Neurosurg*, 2013, 115(10): 2243-2246.
- [7] CHITALE R, TJOUMAKARIS S, GONZALEZ F, et al. Infratentorial and supratentorial strokes after a cranioplasty[J]. *Neurologist*, 2013, 19(1): 17-21.
- [8] LEE GS, PARK SQ, KIM R, et al. Unexpected severe cerebral edema after cranioplasty : case report and literature review[J]. *J Korean Neurosurg Soc*, 2015, 58(1): 76-78.
- [9] MOON HS, LEE SK, KIM SR, et al. Cardiac arrest due to intracranial hypotension following pseudohypoxic brain swelling induced by negative suction drainage in a cranioplasty patient: a case report[J]. *Korean J Anesthesiol*, 2016, 69(3): 292-295.
- [10] MANGUBAT E, SANI S. Acute global ischemic stroke after cranioplasty: case report and review of the literature[J]. *Neurologist*, 2015, 19(5): 135-139.
- [11] SVIRI GE. Massive cerebral swelling immediately after cranioplasty, a fatal and unpredictable complication: report of 4 cases [J]. *J Neurosurg*, 2015, 123(5): 1188-1193.
- [12] KATO A, MORISHIMA H, NAGASHIMA G. Unexpected complications immediately after cranioplasty[J]. *Acute Med Surg*, 2017, 4(3): 316-321.
- [13] KANESHIRO Y, MURATA K, YAMAUCHI S, et al. Fatal cerebral swelling immediately after cranioplasty: a case report[J]. *Surg Neurol Int*, 2017, 8: 156.
- [14] CHEN B, LI W, ZHOU L, et al. Malignant cerebral swelling after cranioplasty due to ipsilateral intracranial vasculopathy: case report and literature review[J]. *World Neurosurgery*, 2017, 107: e11-e17.
- [15] SHEN L, ZHOU Y, XU J, et al. Malignant cerebral swelling after cranioplasty: case report and literature review[J]. *World Neurosurg*, 2018, 110: 4-10.
- [16] NOMURA M, OTA T, ISHIZAWA M, et al. Intracranial hypotension-associated cerebral swelling following cranioplasty: report of two cases[J]. *Asian J Neurosurg*, 2017, 12(4): 794-796.
- [17] ZHANG XY, PAN BG, YE ZY, et al. Massive brain swelling after cranioplasty: a case report[J]. *J Neurol Surg A Cent Eur Neurosurg*, 2019, 80(6): 498-502.
- [18] SHIMIZU Y, TSUCHIYA K, FUJISAWA H. Cerebral swelling caused by deep venous thrombosis immediately after cranioplasty[J]. *Br J Neurosurg*, 2020: 1-4. DOI: 10.1080/02688697.2020.1716948. Epub ahead of print.
- [19] ANUZIS A, DOHERTY JA, MILLWARD CP, et al. Sudden death associated with the use of suction drains - a report of 2 cases following uneventful cranioplasty and literature review. Is the use of suction drains safe[J]. *Br J Neurosurg*, 2021: 1-6. DOI: 10.1080/02688697.2021.1872776. Epub ahead of print.
- [20] 许明伟,黎天尊,周椿,等. 重型创伤性脑损伤颅骨修补术后恶性弥漫性脑肿胀一例[J]. *中华创伤杂志*, 2018, 34(3): 279-281.
- [21] 任祎,佟建洲,张磊,等. 颅骨修补术后罕见并发症——假性缺氧性脑肿胀1例报告并文献复习[J]. *临床神经外科杂志*, 2020, 17(6): 697-699, 703.
- [22] 庞鸣琰,向迅捷,徐才邦. 颅骨修补术后弥漫性脑肿胀致脑疝1例[J]. *中国微侵袭神经外科杂志*, 2019, 24(10): 470.
- [23] VAN ROOST D, THEES C, BRENKE C, et al. Pseudohypoxic brain swelling: a newly defined complication after uneventful brain surgery, probably related to suction drainage[J]. *Neurosurgery*, 2003, 53(6): 1315-1326.
- [24] HONEYBUL S. Sudden death following cranioplasty[J]. *J Korean Neurosurg Soc*, 2016, 59(2): 182-184.
- [25] LIAO CC, KAO MC. Cranioplasty for patients with severe depressed skull bone defect after cerebrospinal fluid shunting[J]. *J Clin Neurosci*, 2002, 9(5): 553-555.
- [26] FAN Q. Pseudohypoxic brain swelling after drilling and drainage for chronic subdural hematoma[J]. *J Neurol Surg A Cent Eur Neurosurg*, 2021, 82(1): 87-89.

责任编辑:王荣兵