

·综述·

椎管内硬膜外脂肪增多症1例与文献综述

陈海丹^{1,2}, 贾思宇^{1,2*}, 汪龙^{1,2}, 曹妍^{1,2},

(1.三峡大学第一临床医学院, 湖北宜昌 443003; 2. 宜昌市中心人民医院脊柱外科, 湖北宜昌 443003)

摘要: 椎管内硬膜外脂肪增多症(spinal epidural lipomatosis, SEL)是椎管内硬膜外脂肪过多积聚引起的椎管内脂肪占位性病变, 主要累及胸腰段椎管, 可无明显症状或出现腰背部疼痛、麻木、下肢无力或反射异常等神经压迫症状, 临幊上较为少见。本科收治1例SEL患者, 总结其临幊资料及治疗效果并进行文献综述。

关键词: 硬膜外脂肪增多症, 椎管狭窄, MRI分级, 肥胖症

中图分类号: R681.5 文献标志码: A 文章编号: 1005-8478(2022)08-0727-05

Spinal epidural lipomatosis: one case report and literature review // CHEN Hai-dan, JIA Si-yu, WANG Long, CAO Yan. *The First Clinical College of Three Gorges University, Yichang 443003, China*

Abstract: Spinal epidural lipomatosis (SEL) is an occupying lesion caused by excessive accumulation of extra-epidural fat in the vertebral canal, which mainly involving the thoracic lumbar canals. Clinically, it is rare condition, might present no obvious symptoms, or neurological symptoms in some extent, such as back pain, numbness, weakness of the lower extremities or abnormal reflexes. We have treated a SEL patient recently, now we report it and review the relevant literatures to introduce the pathogenesis, diagnosis, and treatment of SEL.

Keywords: spinal epidural lipomatosis, lumbar spinal stenosis, MRI grading, obesity

椎管内硬膜外脂肪增多症(spinal epidural lipomatosis, SEL)是正常存在的硬膜外脂肪病理性过度增生堆积引起的椎管内脂肪占位性病变, 临幊上发病率相对较低。目前该病的发病机理尚不十分清楚, 可能与肥胖、内源性或外源性类固醇过量引起代谢紊乱导致脂肪组织异常堆积有关, 而少部分无明确相关诱因的SEL患者被视为特发性椎管内硬膜外脂肪增多症。无症状SEL通常仅在健康体检期间被发现, 而部分有症状的SEL会引起不同程度的腰痛或马尾神经综合征, 严重影响患者的生活质量。鉴于其他可引起相似神经压迫症状的退行性病变十分常见, 作者认为仅将症状用于判断SEL的存在十分具有争议性。作者结合本科收治的1例SEL患者临幊资料, 并查阅国内外相关文献, 对SEL的病因、临幊特点、诊断及治疗进行总结分析并指导相关治疗。

1 临床资料

患者, 男, 66岁, 身高169 cm, 体重90 kg, 体表面积 $31.5 \text{ kg}/\text{cm}^2$, 因“双下肢疼痛麻木不适半年”入院。患者半年前无明显诱因出现双下肢疼痛麻木,

活动后加重, 间歇性跛行。外院检查示腰椎椎管狭窄、颈椎间盘突出。患者既往于外地多家医院进行相关保守治疗, 效果不佳, 症状逐渐加重, 为进一步诊治2021年4月就诊于本院, 门诊以“腰椎椎管狭窄症”收入本科, 无外伤及手术史, 无激素服用史。体格检查: 一般情况良好。脊柱生理曲度存在, 腰椎轻压痛及叩痛, 以L_{4/5}棘突压痛明显, 双侧椎旁肌及骶棘肌稍紧轻压痛, 双侧下肢后外侧压痛, 双侧踝及跟趾背伸及屈曲肌力V级, 双侧L₅~S₂感觉减退。双侧直腿抬高试验及加强试验均阴性, 双侧膝反射、跟腱反射正常, 巴宾斯基征阴性, 双下肢皮温正常, 双足背动脉搏动好。腰椎间盘MR示: 腰椎退行性变, L₄椎体上下缘信号不均, 部分椎间盘T2WI信号减低, L_{3/4}、L_{4/5}、L₅S₁椎间盘膨出, 以L_{4/5}椎间盘为著, 相应硬膜囊受压。腰背部软组织稍肿胀。手术经过: 患者麻醉后取俯卧位, 以C形臂X线机下透视定位标记L_{4/5}椎间隙中心上下1.5 cm处横线与左侧椎旁纵线1 cm交点为双通道置入点。导针紧贴棘突左侧距中线1 cm处, 切开皮肤置入内镜系统, 于棘突中1/3处用导针探查椎板和椎间隙后, 插入扩张器及工作通

DOI:10.3977/j.issn.1005-8478.2022.08.11

作者简介: 陈海丹, 副主任医师, 研究方向: 蛋白质糖基化与骨肿瘤、脊柱脊髓损伤等,(电话)18086220025,(电子信箱)wenquanchd@sina.com

*通信作者: 贾思宇,(电话)18617719675,(电子信箱)jsyjocelyn@163.com

道并固定，经透视机证实无误，调整工作通道及手术野，以等离子刀清除椎板上残留组织，用髓核钳去除椎板外残留组织，咬骨钳咬除椎板，直达黄韧带在椎板腹侧的附着点。见对侧黄韧带及局部组织增生，用弯刮匙将黄韧带从椎板腹侧剥离，枪钳咬除黄韧带。再将通道调向对侧，用磨钻、咬骨钳及骨刀减压硬膜囊背侧骨组织，见对侧黄韧带及局部组织增生，咬除

硬膜囊背侧组织，减压直达右侧L₅神经根，见整个椎管内硬膜囊松弛及双侧L₅神经根松弛，冲洗、止血后放置引流管，缝合伤口。术后诊断：硬膜外脂肪增多症；腰椎间盘突出症；腰椎退行性变。术后给予消炎止痛、营养神经等对症治疗，患者下肢疼痛麻木明显缓解。行腰椎MR及腰椎间盘CT检查，结果示椎管狭窄及神经压迫已解除、局部少许积液。

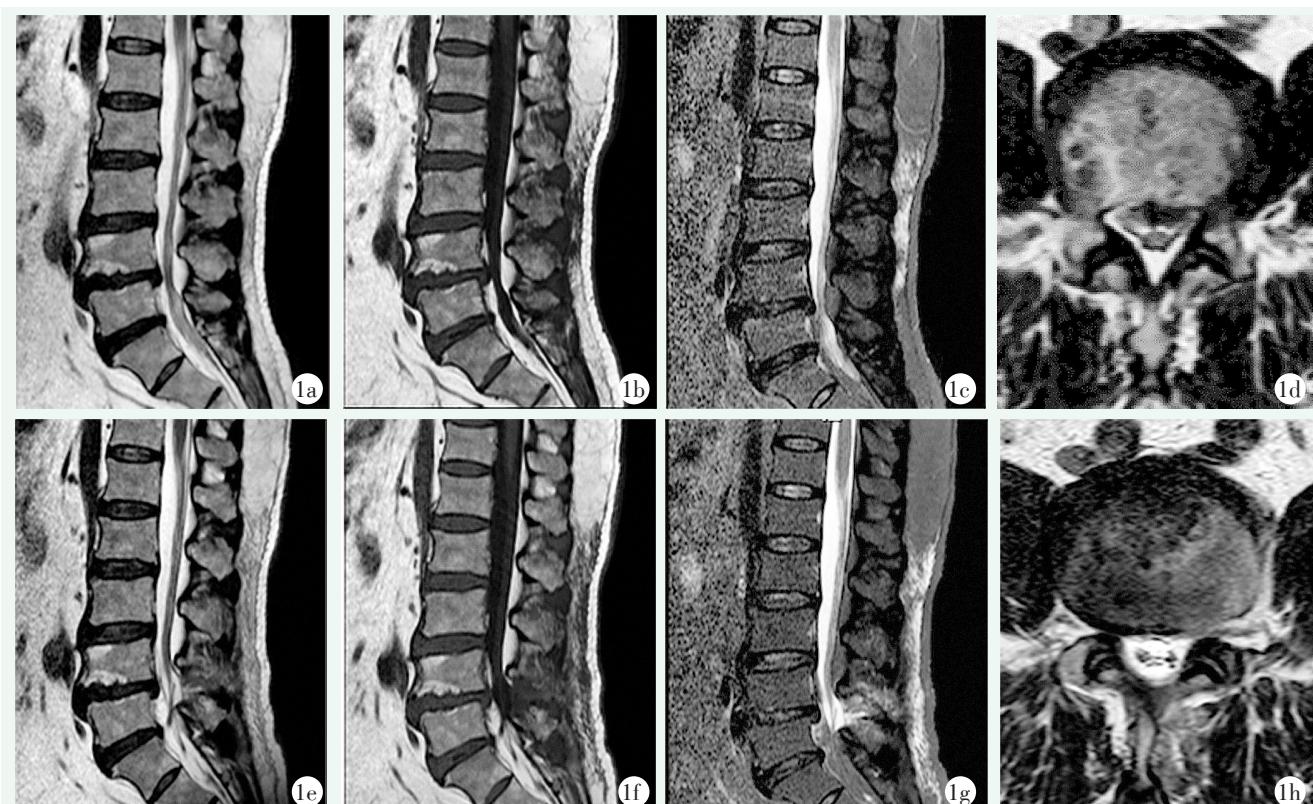


图1 患者，男，66岁，硬膜外脂肪增多症，腰椎间盘突出症，腰椎退行性变，行脊柱内镜下腰椎间盘髓核摘除术，腰椎椎管内占位摘除术和椎管减压术 1a, 1b: 术前腰椎MRI平扫T2WI及T1WI像示椎管内(L_{4/5})高信号 1c: T2压脂像示椎管内(L_{4/5})信号被抑制，相应节段硬膜囊受压，提示脂肪占位 1d: T2WI轴位像示L_{4/5}水平椎管内占位，硬膜囊受压变形 1e~1h: 术后MRI显示L_{4/5}节段椎管狭窄程度较前改善，腰背部及术区软组织水肿。

2 讨论及综述

2.1 病因

SEL是硬膜外脂肪的病理性过度增生堆积引起的椎管内脂肪占位性病变，其特征是椎管内丰富的血管化脂肪组织肥大和增生^[1]，临幊上较少见，好发于中老年男性。其发病机理尚不清楚，可能由Cushing综合征、甲状腺功能减退、高泌乳素血症及其他疾病长期全身性使用或硬膜外注射皮质类固醇激素引起^[2-4]。硬膜外腔通常仅含少量脂肪，在代谢紊乱情况下，内脏脂肪过量可能会发生硬膜外异位脂肪沉积引起SEL^[5]。据报道，高水平类固醇可使炎性细胞因

子TNF- α 和IL-1 β 表达增加^[6]，从而引起皮下、内脏以及硬膜外脂肪的过量产生及堆积^[7, 8]。亦有学者认为除类固醇外，SEL与肝脂肪沉积和其他肝功能障碍存在相关性^[5]。SEL由Lee等^[9]首次报道在肾移植后大剂量服用泼尼松龙的患者。而非Cushing综合征且无糖皮质激素服用史的SEL患者被视为特发性椎管内硬膜外脂肪增多症^[10, 11]。Greenish等^[12]曾报道1例患者在椎管减压术治疗L_{4/5}水平的腰椎管狭窄症后恢复良好，而术后3d复查MRI显示L₅S₁水平硬膜外脂肪严重压迫马尾，在邻近椎管水平出现急性SEL而引起活动困难及双下肢疼痛，因此认为SEL是椎管减压术的可能并发症。但特发性SEL与肥胖之间是否存在相关性存在一定争议^[13, 14]，Han等^[7]

倾向于将肥胖 SEL 归为特发性 SEL 的特殊亚型。Yildirim 等^[15]对 199 例经 MRI 评估为 SEL 的患者进行分析, 提出在该研究患者群体中, BMI 每增加一个点, 患 SEL 的可能性就会增加 13%。另有学者在 Meta 分析中指出, 一定程度上控制了其他因素干扰后, SEL 与 BMI 在一定程度上呈正相关性, 同时该研究认为没有足够的证据证明高脂血症、糖尿病和心脏病等全身性疾病患者更易患上 SEL^[16]。

2.2 临床表现及诊断

SEL 最常见于胸腰段椎管, 极少累及颈段及 S₂ 以下水平。临幊上部分病例可无明显症状, Theyskens 等^[17]统计发现, 28 902 例进行脊柱 MRI 检查的患者中总体 SEL 患病率为 2.5%, 1.8% 的患者有相应症状; 而在这 731 例患者中, 82% 在 MRI 中显示合并其他脊柱病变, 其中有 62% 有椎管狭窄, 31% 有神经根受压迹象, 18% 有过脊柱外科手术史。由此可以看出 SEL 几乎无明显特异性症状, 多是由于硬膜外腔的多余脂肪组织产生压迫引起, 具体表现则取决于压迫的位置和程度, 而对于合并其他脊柱疾病者更易被忽略。但当脂肪组织压迫脊髓、神经时可引起相应症状及体征, 如肢体肌力减弱、感觉减退甚至消失、双下肢无力麻木、腱反射消失或亢进及病理反射等, 或伴有胸腰背部放射性疼痛、间歇性跛行和马尾综合征的表现^[18-20]。MRI 是 SEL 最敏感的诊断方式, T1W1、T2W1 及脂肪抑制序列上可高度特异地区分硬脊膜与堆积的脂肪信号, 精确定位脂肪堆积部位并测量脂肪厚度^[21]。相关研究表明, 正常成年人的硬膜外脂肪厚度约为 (7.35±1.68) mm^[22]。而 SEL 最典型的表现为轴位上硬膜外囊被压缩成“Y”形、星形或卵圆形, Kuhn 等^[23]在 89% 的患者中均发现类似于字母“Y”的征象, 并指出这是 SEL 特有的。基于 MRI 图像测量硬膜囊前后径 (DuS)、硬膜外脂肪 (EF) 和椎管 (SC) 的前后径和横截面积, 计算出 EF/SC 与 DuS/EF 指数, 并根据 Borré 等^[24]的分级方法, 将其分为: 0 级 (正常), DuS / EF 指数 ≥ 1.5、EF / SC 指数 ≤ 40%; 1 级, 1 < DuS/EF 指数 ≤ 1.49、41% ≤ EF/SC ≤ 50%, 提示 EF 轻度增生, 可无明显症状; 2 级, 0.34 ≤ DuS/EF 指数 ≤ 0.99、51% ≤ EF/SC ≤ 74%, 提示 EF 中度增生, 硬膜囊部分压缩, 部分患者可出现相应椎管压迫症状; 3 级, DuS/EF 指数 ≤ 0.33, EF/SC 指数 ≥ 75%, 提示 EF 重度增生, 硬膜囊被严重压迫从而引起神经根痛、神经性跛行甚至是马尾综合征等一系列症状。MRI 对于诊断 SEL 的敏感性有助于 SEL 早期诊断, 并可根据 EF 的范围

及症状体征选择治疗方案。

2.3 治疗

SEL 的治疗主要取决于发病原因和症状的严重程度^[25], 临幊上主张保守治疗来缓解患者症状; 对于有相关危险因素的患者, 治疗原发病、减少或中止类固醇药物的应用可减轻症状; 考虑肥胖引起 SEL 的患者, 需进行全面的内分泌检查以排除内源性类固醇激素疾病, 减小 BMI 可有效减少硬膜外脂肪量, 从而改善神经系统症状。但保守治疗失败或发生急性严重神经症状时, 患者则需进行手术减压^[26]。Tardivo 等^[27]报道 1 例 L₅S₁ 硬膜外脂肪压迫的患者, 表现为神经源性跛行和神经根病, 经保守治疗后无明显改善且出现急性发作的双足下垂和泌尿系统紊乱, 进而选择脂肪组织切除术减压, 术后神经系统体征和症状得到明显改善。对于特发性 SEL 患者的临床管理更为困难, 因为没有明确的发病机制, 症状明显的患者临幊倾向及早进行手术治疗。目前临幊上对 SEL 的手术治疗尚无共识, 主要根据脂肪压迫位置及患者自身情况选择不同手术方式, 包括椎板切除术、脂肪组织去除术、内窥镜引导脂肪抽吸、椎管减压术及椎体固定融合减压术等^[28-30]。有学者认为广泛椎板切除术可能会因脊柱后部元件损伤而引起脊柱不稳和畸形的发生^[31, 32]。椎间融合术已广泛被应用于微创和刚性固定以保证脊柱稳定性, 其中斜外侧椎间融合术可使硬脊膜管空间增加, 从而改善下肢神经症状^[33-35], 但也存在相对活动度下降、脊柱畸形等并发症。而重建脊柱稳定性和减少术后并发症对术后恢复十分重要, 因此越来越多的外科医师格外重视对脊柱稳定性的维护。Yang 等^[29]为了充分有效减压的同时维持脊柱稳定性、保持活动能力, 应用椎板切开去除堆积的脂肪及棘突-椎板原位再植技术, 不仅可彻底去除硬膜外多余脂肪, 还可恢复骨性椎管解剖结构^[36]。后柱复合体涉及骶棘肌的附着, 维持后部动态稳定结构, 因此脊柱后骨结构的重建为椎板成形术后维持脊柱的骨骼结构提供了重要的生理条件^[37]。而 Zhou 等^[38]经生物力学试验结果表明, ARCH 钢板内固定椎板再植技术可提高脊柱的稳定性、抗压性和抗弯曲、抗剪、抗旋转能力。这些术式及经验均为 SEL 的治疗提供了更多适用于不同患者的选择。

2.4 小结

回顾并结合本例患者, 患者既往无明确内源性类固醇激素疾病及外源性类固醇激素摄入史, 因此作者倾向于将其归因于肥胖引起的特发性 SEL 且已产生明显神经压迫症状, 同时合并有腰椎间盘膨突出,

MRI 分级考虑 2 级, Dus/EF 指数约为 0.52, EF/Spi C=65.4%。SEL 在临幊上发病率较低, 易被临幊及影幊科医师忽略而导致诊断不足, 应提高警惕。因此脊柱外科医生要具备丰富的影幊学知识, 不能完全依赖影幊医生的报告, 相应诊断需经双方共同做出判断, 同时应不断提高对少见病的认识与学习, 使影幊学的优势更好应用于该病诊断及术前评估当中。该患者经保守治疗无效, 症状持续加重, 严重影响正常生活。本科医生经术前 MRI 图像发现脂肪堆积主要位于 L_{4/5} 水平背侧, 且合并椎间盘膨出, 硬膜囊受压。而相关研究认为术中尽可能多地去除脂肪组织对于预防复发性疾病十分重要^[39]。后经科室会诊决定行内镜下腰椎间盘髓核摘除术+椎管减压+脂肪组织摘除术, 无需进行固定融合术, 可在减小患者损伤的情况下, 有效改善硬膜囊受压, 缓解神经压迫症状, 还可减轻患者的经济负担。

综上所述, SEL 在临幊上较为罕见, 当医生认识不足或合并其他脊柱疾病时, 易被误诊或忽略, 而通过脊柱 MRI 检查可以观察患者脂肪堆积情况并对其进行分级。因此完善患者全面细致的检查和加强对该疾病的学习、认识和警醒, 可减少误诊漏诊的发生, 从而及早选择合理的治疗方案, 改善患者生活质量。

参考文献

- [1] Artner J, Leucht F, Cakir B, et al. Spinal epidural lipomatosis [J]. Orthopade, 2012, 41 (11) : 889–893.
- [2] Lotan I, Charlson RW, Fatterpekar GM, et al. Progressive myelopathy associated with spinal epidural lipomatosis in three non-obese patients with type 1 diabetes mellitus [J]. J Neurol Sci, 2020, 411 (2) : 116688.
- [3] Ishihara S, Fujita N, Azuma K, et al. Spinal epidural lipomatosis is a previously unrecognized manifestation of metabolic syndrome [J]. Spine J, 2019, 19 (3) : 493–500.
- [4] Bhalla S, Puri V, Skjei K. Spinal epidural lipomatosis: a rare complication from hormonal therapy for infantile spasms [J]. Pediatr Neurol, 2019, 101 (1) : 78–80.
- [5] Abe T, Miyazaki M, Ishihara T, et al. Spinal epidural lipomatosis is associated with liver fat deposition and dysfunction [J]. Clin Neurol Neurosurg, 2019, 185 (2) : 105480.
- [6] Fujita N, Hosogane N, Hikata T, et al. Potential involvement of obesity-associated chronic inflammation in the pathogenesis of idiopathic spinal epidural lipomatosis [J]. Spine, 2016, 41 (23) : E1402–E1407.
- [7] Han X, Xu D, Ren Z, et al. Lumbar spinal stenosis combined with obesity-induced idiopathic spinal epidural lipomatosis treated with posterior lumbar fusion: case report [J]. BMC Surg, 2021, 21 (1) : 215.
- [8] Alicioglu B, Sarac A, Tokuc B. Does abdominal obesity cause increase in the amount of epidural fat [J]. Eur Spine J, 2008, 17 (10) : 1324–1328.
- [9] Lee M, Lekias J, Gubbay SS, et al. Spinal cord compression by extradural fat after renal transplantation [J]. Med J Australia, 1975, 1 (7) : 201–203.
- [10] Robertson SC, Traynelis VC, Follett KA, et al. Idiopathic spinal epidural lipomatosis [J]. Neurosurgery, 1997, 41 (1) : 68–75.
- [11] Haddad SF, Hitchon PW, Godersky JC. Idiopathic and glucocorticoid-induced spinal epidural lipomatosis [J]. J Neurosurg, 1991, 74 (1) : 38–42.
- [12] Greenish D, Watura K, Harding I. Spinal epidural lipomatosis following bilateral spinal decompression surgery [J]. BMJ Case Rep, 2019, 12 (2) : e226985.
- [13] Kim K, Mendelis J, Cho W. Spinal epidural lipomatosis: a review of pathogenesis, characteristics, clinical presentation, and management [J]. Global Spine J, 2019, 9 (6) : 658–665.
- [14] Sasagasko T, Hanakita J, Takahashi T, et al. Clinical implications of the epidural fat thickness in the management of lumbar spinal stenosis [J]. World Neurosurg, 2021, 146 (2) : e205–e213.
- [15] Yildirim B, Puvanesarajah V, An HS, et al. Lumbosacral epidural lipomatosis: a retrospective matched case-control database study [J]. World Neurosurg, 2016, 96 (2) : 209–214.
- [16] Zhang B, Yuan H, Hu L, et al. Obesity is a risk factor for epidural lipomatosis: a meta-analysis [J]. J Orthop Surg (Hong Kong), 2021, 29 (2) : 23094990211027391.
- [17] Theyskens NC, Paulino Pereira NR, Janssen SJ, et al. The prevalence of spinal epidural lipomatosis on magnetic resonance imaging [J]. Spine J, 2017, 17 (7) : 969–976.
- [18] Louachama O, Rada N, Draiss G, et al. Idiopathic spinal epidural lipomatosis: unusual presentation and difficult management [J]. Case Rep Pediatr, 2021, 2021: 4562312.
- [19] Kim K, Mendelis J, Cho W. Spinal epidural lipomatosis: a review of pathogenesis, characteristics, clinical presentation, and management [J]. Global Spine J, 2019, 9 (6) : 658–665.
- [20] Martínez Santos JL, Saway B, Damon AC, et al. Multilevel hemilaminotomy windows for the surgical management of spinal epidural lipomatosis causing syringomyelia: technical note and literature review [J]. World Neurosurg, 2021, 148 (1) : 4–12.
- [21] 谢新洲, 张喜善, 武京国, 等. 特发性椎管内硬膜外脂肪增多症 1 例并文献复习 [J]. 中国矫形外科杂志, 2017, 25 (23) : 2206–2208.
- [22] Ge Y, Yang X, You Y, et al. Comparison of relative and absolute values of magnetic resonance imaging in the diagnosis of spinal epidural lipomatosis [J]. J Spinal Cord Med, 2019, 42 (4) : 502–507.
- [23] Kuhn MJ, Youssef HT, Swan TL, et al. Lumbar epidural lipomatosis: the "Y" sign of the cal sac compression [J]. Comput Med Imaging Graph, 1994, 18 (5) : 367–372.
- [24] Borré DG, Borré GE, Aude F, et al. Lumbosacral epidural lipomatosis: MRI grading [J]. Eur Radiol, 2003, 13 (7) : 1709–1721.

- [25] Fogel GR, Cunningham PY 3rd, Esses SI. Spinal epidural lipomatosis: case reports, literature review and meta-analysis [J]. *Spine J*, 2005, 5 (2) : 202–211.
- [26] Zuccoli G, Pipitone N, De Carli N, et al. Acute spinal cord compression due to epidural lipomatosis complicated by an abscess: magnetic resonance and pathology findings [J]. *Eur Spine J*, 2010, 19 (2) : 216 – 219.
- [27] Tardivo V, Scudieri C, Bruzzo M, et al. Acute neurologic decline in a patient with spinal stenosis: blame it on the epidural fat [J/OL]. *Br J Neurosurg*, 2021. Epub ahead of print. DOI: 10.1080/02688697.2021.1958149
- [28] Lisai P, Doria C, Crissantu L, et al. Cauda equina syndrome secondary to idiopathic spinal epidural lipomatosis [J]. *Spine (Phila Pa 1976)*, 2001, 26 (3) : 307–309.
- [29] Yang K, Ji C, Luo D, et al. Lumbar laminotomy and replantation for the treatment of lumbar spinal epidural lipomatosis: a case report [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2021, 100 (30) : e26795.
- [30] Sairyo K, Sakai T, Higashino K, et al. Minimally invasive excision of lumbar epidural lipomatosis using a spinal endoscope [J]. *Minim Invasive Neurosurg*, 2008, 51 (1) : 43–46.
- [31] McGirt MJ, Garcés-Ambrossi GL, Parker SL, et al. Short-term progressive spinal deformity following laminoplasty versus laminectomy for resection of intradural spinal tumors: analysis of 238 patients [J]. *Neurosurgery*, 2010, 66 (5) : 1005–1012.
- [32] Hao X, Lin W. Vertebral plate and ligament composite laminoplasty in spinal cord tumor surgery: analysis of 94 patients [J]. *Transl Neurosci*, 2021, 12 (1) : 40–45.
- [33] Lin GX, Akbary K, Kotheeranurak V, et al. Clinical and radiologic outcomes of direct versus indirect decompression with lumbar interbody fusion: a matched-pair comparison analysis [J]. *World Neurosurg*, 2018, 119 (4) : e898–e909.
- [34] Du X, She Y, Ou Y, et al. Oblique Lateral interbody fusion versus transforaminal lumbar interbody fusion in degenerative lumbar spondylolisthesis: a single-center retrospective comparative study [J]. *Biomed Res Int*, 2021, 2021: 6693446.
- [35] Xie T, Wang C, Yang Z, et al. Minimally invasive oblique lateral lumbar interbody fusion combined with anterolateral screw fixation for lumbar degenerative disc disease [J]. *World Neurosurg*, 2020, 135 (3) : e671–e678.
- [36] Takaoka H, Inage K, Eguchi Y, et al. Comparison between intervertebral oblique lumbar interbody fusion and transforaminal lumbar interbody fusion: a multicenter study [J]. *Sci Rep*, 2021, 11 (1) : 16673.
- [37] Song Z, Zhang Z, Ye Y, et al. Efficacy analysis of two surgical treatments for thoracic and lumbar intraspinal tumours [J]. *BMC Surg*, 2019, 19 (1) : 131.
- [38] Zhou D, Nong LM, Gao GM, et al. Application of lamina replantation with ARCH plate fixation in thoracic and lumbar intraspinal tumors [J]. *Exp Ther Med*, 2013, 6 (2) : 596–600.
- [39] Ferlic PW, Mannion AF, Jeszenszky D, et al. Patient-reported outcome of surgical treatment for lumbar spinal epidural lipomatosis [J]. *Spine J*, 2016, 16 (11) : 1333–1341.

(收稿:2021-07-01 修回:2021-10-08)

(同行评议专家: 付存磊 王丹)

(本文编辑: 宁桦)