

## · 经验与教训 ·

## 儿童颈部支气管源性囊肿的诊治

### The diagnosis and treatment of cervical bronchogenic cysts in children pediatric

赵利敏<sup>1</sup> 倪坤<sup>1</sup> 陈芳<sup>1</sup> 沈晨凌<sup>1</sup> 范文焱<sup>1</sup> 吴佳丽<sup>1</sup> 李晓艳<sup>1</sup>

[关键词] 儿童;颈部;支气管源性囊肿

Key words children;cervix;bronchogenic cysts

doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2018.21.015

[中图分类号] R762 [文献标志码] B

支气管源性囊肿是一种罕见的先天性疾病,源于原始前肠的发育异常,占先天性支气管肺前肠囊性畸形的20%~30%,发病部位以肺内与纵隔多见,极少出现颈部、胸壁及腹膜后<sup>[1]</sup>。我科收治儿童颈部支气管源性囊肿6例,现总结报道如下。

#### 1 资料与方法

2014-04—2017-06期间我科共收治6例头颈部支气管源性囊肿患儿,其中男4例,女2例;年龄1d~3岁6个月,平均18个月。1例位于下咽后壁偏左侧,5例位于颈部;2例出现呼吸困难,余4例表现为颈部肿块。

本组患儿中5例术前行彩色超声检查,其中1例肿物呈弱回声,4例肿物呈无回声;肿物内均未见明显彩色血流信号。6例术前均行增强CT检查,呈囊性占位性病变,无明显强化,CT值为20~65 HU,平均32 HU。见图1。6例患儿中术前2例考虑支气管源性囊肿,1例误诊为梨状窝瘘,1例误诊为甲状舌管囊肿,1例误诊为畸胎瘤,1例误诊为淋巴管瘤。

#### 2 结果

6例患儿均行手术治疗,其中5例颈外径路颈部肿块切除,1例因囊壁有软骨样组织与气管、食管粘连,仔细分离后,为避免气管食管瘘,术后放置胃管半个月;1例术中行直达喉镜检查,梨状窝未见内瘘口,排除梨状窝瘘;1例肿块位于颈部正中,因CT显示与舌骨关系紧密,术中切除肿物的同时,切除部分舌骨;1例肿块位于左侧下咽后壁,支撑喉镜下低温等离子射频刀于根部完整切除肿物。6例肿块均在术中发现灰白色黏稠胶冻样内容物(图2),2例单囊,4例呈多囊性。术后病理检查(图3)见囊腔内衬鳞状上皮和假复层纤毛柱状上皮,上皮见涎腺及平滑肌、软骨组织及淋巴细胞浸润,诊断为支气管源性囊肿。术后6例患儿均顺利康复,无并发症;术后随访6~40个月,未见复发。

#### 3 讨论

颈部支气管源性囊肿是一种罕见的先天性疾病,其发病机制目前尚不明确,较为公认的是Go-vaerts等<sup>[2]</sup>提出的胚芽脱落移位假说,当胚

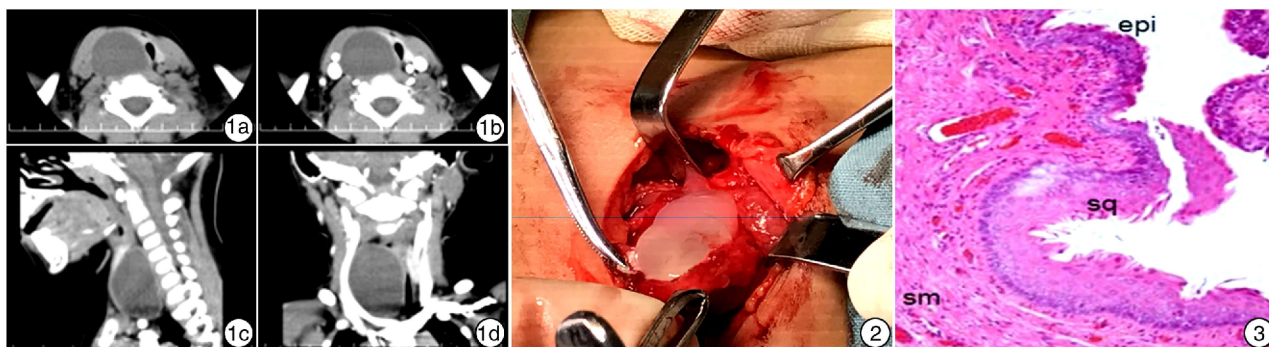


图1 颈部支气管源性囊肿CT表现 右侧颈部3.8 cm×3.0 cm×5.0 cm大小囊性肿块,边界清,未见明显强化,CT值约25 HU,邻近组织稍受压改变;1a:横断位平扫;1b:横断位增强;1c:矢状位增强;1d:冠状位增强;图2 术中所见囊内可见乳白色胶冻样囊液;图3 病理切片 epi:呼吸型上皮;sq:黏液蛋白腺体;sm:黏膜下透明软骨。

<sup>1</sup>上海市儿童医院耳鼻咽喉-头颈外科(上海,200062)

通信作者: 李晓艳, E-mail: chhshent@126.com

胎发育至第 3~6 周时,源于胚胎发育时期原始前肠腹侧气管、支气管树或肺芽发育异常,为组织细胞游走或脱落于不同部位所致<sup>[1-2]</sup>。根据其发生位置分为 3 型:肺内型、纵隔型、异位型。临床以肺内型和纵隔型多见,异位型发病部位多见于腹部、脊髓、皮下浅组织、胃壁、大脑实质等,发生于颈部者罕见<sup>[3-5]</sup>。

发生于颈部的支气管源性囊肿多以颈部肿物就诊,因此临床上常误诊为淋巴管瘤、鳃裂囊肿、甲状舌管囊肿、表皮样囊肿、异位甲状腺、结节性甲状腺肿和颈部脓肿等<sup>[5-6]</sup>。患儿无自觉症状,无意中发肿块且生长缓慢。由于囊肿上皮的持续分泌作用,随着年龄的增大,肿块逐渐增大,对周围组织器官产生压迫、牵拉作用,遂出现相应的临床症状<sup>[7-8]</sup>。本组有 2 例患儿因为肿块位于气管食管沟,肿块逐渐压迫推移气管,引起气道变窄,出现呼吸困难而就诊。食管旁型支气管源性囊肿,食管与囊肿可共用一壁,术中需严密缝扎,必要时对食管进行修补,以减少食管瘘的发生。术前检查以 B 超、增强 CT 为主,可表现为圆形或类圆形液囊肿、气囊肿、液气囊肿或多发性囊肿,境界相对清楚,囊壁薄而均匀,多无强化,其中含气液的囊肿对诊断有一定特异性<sup>[9]</sup>。但颈部的支气管源性囊肿多与气管不通,且囊液多为黏液,非含气囊腔,如本组病例中囊液均为黏稠液体,故难以通过术前影像学检查与其他疾病鉴别。

支气管源性囊肿可因感染或囊肿的逐渐增大、压迫临近器官而产生相应的临床症状,且该囊肿有恶变的可能,预后很难预料,因此主张积极手术治疗,而不应以是否出现症状作为有无手术适应证的标准,具体手术方式应根据病变的大小、位置以及其与周围脏器的关系而定<sup>[9-11]</sup>。本组 6 例患儿中有 2 例出现明显临床症状,压迫气管引起呼吸困难,余 4 例则仅表现为颈部肿块。5 例行颈外径路颈部肿块切除术,其中 1 例囊壁有软骨样组织与气管、食管粘连,但未与气管腔相通,食管壁外膜受侵且未见肌层。1 例因肿块位于左侧下咽后壁,支撑喉镜下低温等离子射频刀于根部完整切除。术后病理检查均证实为支气管源性囊肿,随访中未见复发。

颈部支气管源性囊肿属罕见的先天发育异常,临床表现多样,易误诊为其他病变,影像学上含气液的囊肿对诊断有一定特异性,病理诊断依赖于囊壁出现正常支气管组织。尽管该病变为良性,由于

可出现感染、囊肿增大压迫临近器官及恶变可能,因此,一旦发现病灶,建议积极完整的手术切除,术中应仔细分离囊肿,避免囊肿破裂,并注意是否与气管、食管相通,防止食管瘘。

#### 参考文献

- [1] RIBET M E, COPIN M C, GOSSELIN B. Bronchogenic cysts of the mediastinum[J]. *J Thorac Cardiovasc Surg*, 1995, 109: 1003-1010.
- [2] GOVAERTS K, VAN EYKEN P, VERSWIJVEL G, et al. A bronchogenic cyst, presenting as a retroperitoneal cystic mass[J]. *Rare Tumors*, 2012, 4: e13.
- [3] AL-BALUSHI Z, EHSAN M T, AL SAJEE D, et al. Scapular bronchogenic cyst: a case report and literature review[J]. *Oman Med J*, 2012, 27: 161-163.
- [4] BERNASCONI A, YOO S J, GOLDING F, et al. Etiology and outcome of prenatally detected paracardial cystic lesions: a case series and review of the literature[J]. *Ultrasound Obstet Gynecol*, 2007, 29: 388-394.
- [5] USTUNDAG E, ISERI M, KESKIN G, et al. Cervical bronchogenic cysts in head and neck region[J]. *J Laryngol Otol*, 2005, 119: 419-423.
- [6] KIRALJ A, VUCKOVIC N, MIJATOV I. Congenital cervical bronchogenic cyst: a case report[J]. *Srp Arh Celok Lek*, 2015, 143: 317-321.
- [7] BOCCIOLINI C, DALLOLIO D, CUNSOLO E, et al. Cervical bronchogenic cyst: asymptomatic neck mass in an adult male[J]. *Acta Otolaryngol*, 2006, 126: 553-556.
- [8] LIU H S, LI S Q, CAO Z L, et al. Clinical features and treatment of bronchogenic cyst in adults[J]. *Chin Med Sci J*, 2009, 24: 60-63.
- [9] LEE D H, PARK C K, KUM D Y, et al. Clinical characteristics and management of intrathoracic bronchogenic cysts: a single center experience[J]. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg*, 2011, 44: 279-284.
- [10] CUYPERS P, DE LEYN P, CAPPELLE L, et al. Bronchogenic cysts: a review of 20 cases[J]. *Eur J Cardiothorac Surg*, 1996, 10: 393-396.
- [11] LIMAIEF F, AYADI-KADDOUR A, DJILANI H, et al. Pulmonary and mediastinal bronchogenic cysts: a clinicopathologic study of 33 cases[J]. *Lung*, 2008, 186: 55-61.

(收稿日期:2018-05-19)