

儿童腮腺区病损的诊疗特点

徐宏鸣¹ 郑阳阳¹ 陈芳¹ 李晓艳¹

[摘要] 目的:通过临床病例资料分析了解儿童腮腺区病损的疾病谱,明确现有治疗方法下疾病的转归和预后。方法:分析 170 例腮腺区病损患儿的基础资料、入院临床症状、诊断结果、治疗方法、预后及随访情况。结果:170 例腮腺区病损患儿中,先天性疾病 83 例(48.82%),脉管性肿物 62 例(36.47%),良恶性肿瘤 17 例(10.00%),炎性病变 8 例(4.71%);108 例患儿接受手术治疗,34 例患儿接受局部博来霉素注射治疗,28 例患儿接受手术和局部博来霉素注射治疗。2 例患儿术后复发经再次手术治愈;1 例患儿出现面瘫,随访 3 个月后恢复。结论:儿童腮腺区病损最为常见的疾病是先天性疾病和脉管性肿物。手术结合博来霉素局部治疗是主要治疗手段且取得了显著的疗效。口服普萘洛尔对于腮腺区血管瘤有一定的治疗作用。

[关键词] 儿童;腮腺疾病;外科手术

doi:10.13201/j.issn.2096-7993.2020.10.017

[中图分类号] R739.8 **[文献标志码]** A

Diagnosis and characteristics of parotid region lesions in children

XU Hongming ZHENG Yangyang CHEN Fang LI Xiaoyan

(Department of Otolaryngology Head and Neck Surgery, Children's Hospital of Shanghai, Shanghai Jiaotong University, Shanghai, 200062, China)

Corresponding author: LI Xiaoyan, E-mail: chhshent@163.com

Abstract Objective: To observe the disease spectrum of the parotid region lesions in children, and clarify the outcome and prognosis of the disease by analyzing of clinical data. **Method:** The basic information, clinical symptoms, diagnosis results, treatment, prognosis and follow-up of 170 cases with parotid region lesions were analyzed. **Result:** Among 170 cases of the parotid region lesions, 83 cases(48.82%) were congenital disease, 62 cases(36.47%) were vascular mass, 17 cases(10.00%) were benign or malignant tumor, and 8 cases(4.71%) were infectious disease; 108 cases of the patients were treated with surgery, 34 of them were treated with local bleomycin injection while 28 cases were treated with both surgery and local bleomycin injection. Two cases was cured by reoperation after recurrence and 1 case had facial paralysis but recovered after 3 months of follow-up. **Conclusion:** The most common diseases of parotid region lesions in children were congenital disease and vascular mass. Surgery combined with bleomycin local treatment is the main therapy in parotid area and has achieved remarkable results. Oral propranolol has certain therapeutic value for parotid region hemangioma.

Key words child; parotid diseases; surgical procedures, operative

儿童腮腺区病损以先天性疾病居多,该部位肿

物往往累及腮腺、面神经及外耳道,病理较为复杂,给临床诊治工作带来一定难度。关于儿童腮腺区脉管性肿物、先天性瘘管、腮腺来源肿物及腮腺区炎性病变,已有学者进行了一些有价值的临床病例

¹上海市儿童医院 上海交通大学附属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@163.com

[3] Dan P, Eran A. Imaging of the parapharyngeal space [J]. Oper Tech Otolaryngol Head Neck Surg, 2014, 25 (3): 220-226.
[4] Stambuk HE, Patel SG. Imaging of the parapharyngeal space [J]. Otolaryngol Clin North Am, 2008, 41 (1): 77-101.
[5] 丁忠祥,袁建华,沈君,等.咽旁间隙在头颈部肿瘤 MRI 诊断中的价值. [J]. 实用放射学杂志, 2007, 23 (4): 455-457.
[6] Gupta A, Chazen JL, Phillips CD. Imaging evaluation of the parapharyngeal space [J]. Otolaryngol Clin North Am, 2012, 45(6): 1223-1232.
[7] Bradley PJ, Bradley PT, Olsen KD. Update on the management of parapharyngeal tumours [J]. Curr

Opin Otolaryngol Head Neck Surg, 2010, 19 (2): 92-98.
[8] Isobe K, Shimizu T, Akahane T, et al. Imaging of ancient schwannoma [J]. AJR Am J Roentgenol, 2004, 183(2): 331-336.
[9] 李平栋,陈晓红,房居高,等.改良颈-腮腺入路高位咽旁间隙肿瘤切除术探讨[J].中国耳鼻咽喉头颈外科, 2013, 20(7): 337-340.
[10] Horowitz G, Ben-Ari O, Wasserzug O, et al. The transcervical approach for parapharyngeal space pleomorphic adenomas: indications and technique [J]. PLoS One, 2014, 9(2): e90210.

(收稿日期:2019-12-17)

分析^[1-5]。然而,针对儿童腮腺区病损诊疗特点的系统性研究报道较少。因此,本文回顾分析了上海市儿童医院耳鼻咽喉头颈外科 2014-08-2019-08 收治的 170 例腮腺区病损患儿的资料,进一步探讨其临床诊疗特点。

1 资料与方法

1.1 临床资料

170 例腮腺区病损患儿,男 72 例,女 98 例;月龄 1~192 个月,平均年龄为 34(16,74)个月[研究对象年龄不符合正态分布,采用 M(P₂₅, P₇₅)表示]。纳入标准:患儿均通过 B 超、CT 及术后病理检查明确诊断为腮腺区病损。排除标准:合并影响病情转归的其他疾病;病例资料不完整者;放弃治疗者。

1.2 观察指标

记录患儿基础资料、入院临床症状、诊断结果、治疗方法、预后及随访情况。

2 结果

2.1 患儿发病情况

近年来病例数量整体呈上升趋势,其中 2014-2019 年分别为 18、46、27、33、46 例(以第 1 年 8 月至第 2 年 8 月为统计区间)。男性发病率(42.35%)低于女性(57.65%)。男性患儿的平均年龄 M(P₂₅, P₇₅)为 45(18,80)个月,女性为 28(14,72)个月,男性高于女性。1~36 月龄、>36~72 月龄、>72~108 月龄及 >108 月龄的患儿分别为 95 例、34 例、23 例及 18 例,其中 1~36 月龄为高发期,占 55.88%。随着年龄增长,儿童腮腺区病损的发病率逐步下降。

按发生占比排序,第一鳃裂瘻管 80 例(47.06%),腮腺区淋巴管瘤 46 例(27.06%),腮腺区血管瘤 16 例(9.41%),腮腺区脂肪瘤 4 例(2.35%),腮腺区神经纤维瘤病、腮腺区脓肿、副耳

合并面部瘻管、腮腺区淋巴结炎各 3 例,腮腺 castleman 肿瘤 2 例,腮腺区神经鞘瘤、腮腺区多形性腺瘤、腮腺区肉芽肿、腮腺区淋巴瘤、腮腺 Mikulicz 病、腮腺区囊肿、腮腺区肌纤维瘤、腮腺区结核、腮腺区横纹肌肉瘤、腮腺区黏液表皮样癌各 1 例。

整体来看,先天性疾病(第一鳃裂瘻管和副耳合并面部瘻管)及脉管性肿物(腮腺区淋巴管瘤和腮腺区血管瘤)为儿童主要的腮腺区病损疾病,分别为 83 例(48.82%)和 62 例(36.47%);同时腮腺区脂肪瘤并不少见(图 1)。其中,脉管性肿物发病年龄普遍偏低,平均月龄 M(P₂₅, P₇₅)为 19(7,36)个月,是 1~36 月龄主要发病类型;先天性疾病发病年龄较高,平均月龄 M(P₂₅, P₇₅)为 40(24,82)个月,是 >36~72 月龄主要发病类型;其他病种则主要集中于 >72 月龄者。

2.2 主要治疗方法及预后情况

治疗以手术为主,结合博来霉素局部治疗和口服普萘洛尔。其中,80 例第一鳃裂瘻管患儿均接受手术治疗(图 2),1 例术后复发经再次手术治愈,1 例术后出现面瘫,随访 3 个月后恢复,1 例术后出现涎腺瘻,换药后恢复;46 例腮腺区淋巴管瘤患儿均接受博来霉素局部注射或术腔灌洗治疗(1~3 次),其中 26 例患儿因肿物体积过大或注射效果不佳而接受手术治疗(图 3),1 例术后复发经再次手术治愈,2 例瘤体缩小但有残留;16 例腮腺区血管瘤患儿均接受口服普萘洛尔和局部博来霉素注射治疗(1~5 次),2 例患儿因注射效果不佳而接受手术治疗,随访病例均未出现复发迹象;4 例腮腺区脂肪瘤患儿均接受手术治疗,随访期间未复发;其余腮腺区神经纤维瘤病、腮腺区脓肿、副耳合并面部瘻管等 24 例患儿接受了手术或切开排脓治疗,随访期间亦未出现复发表现。



图 1 腮腺区脂肪瘤增强 CT; 图 2 第一鳃裂瘻管面神经同瘻管的关系; 图 3 腮腺区淋巴管瘤术中情况

3 讨论

3.1 腮腺区先天性疾病

本研究中腮腺区先天性疾病以第一鳃裂瘻管最多见,共 80 例(男 28 例,女 52 例)。该病分为二

型, I 型多起病于成年期,表现为腮腺区域病变; II 型表现为颈前三角区缺损,通常在童年时期即已发病^[6]。传统意见认为第二鳃裂瘻管最为常见,占有所有腮裂瘻管的 95%左右,而第一鳃裂瘻管占 1%~

4%^[7]。而本研究中第一鳃裂瘻管占 47.06%，远高于第二鳃裂瘻管的 2.30%^[8]。相似的比例在其他亚洲国家亦有报道^[9]。然而，这一占比同其他相关文献报道不同是否源于亚洲人种的特殊性有待进一步更大样本量的研究。研究显示，第一鳃裂瘻管在女性中的发生率高于男性，本研究得到的结果支持这种发现。本研究显示第一鳃裂瘻管是儿童腮腺区病损最为常见的类型，这一结果同国内文献报道不相符^[1]，可能与我科收治的病种特点相关。

3.2 腮腺区脉管性肿物

腮腺区血管瘤是出生 1 年内婴幼儿最为常见的腮腺区肿瘤，占婴幼儿所有腮腺区肿瘤的 50% 以上^[10]。自 Léauté-Labrèze 等首次报道普萘洛尔成功治疗血管瘤后，普萘洛尔在婴幼儿耳鼻咽喉头颈外科多个部位的血管瘤治疗上取得了很好的疗效^[11]，尤其对于婴幼儿腮腺区血管瘤，治愈率为 71%^[12]。本研究得到了与之前病例资料相似的治愈率。但仍有一部分腮腺区血管瘤患儿通过普萘洛尔治疗未能根治，需进一步行博来霉素注射治疗或手术治疗。腮腺区淋巴管瘤是腮腺区又一较为多见的脉管性肿瘤^[1]，是淋巴组织和淋巴管发育畸形所导致的先天性良性肿瘤，表现为大小不等的囊性病变，有多房或单房形式，呈半透明状。一些患儿出生时即出现，多数患儿在 2 岁以前出现临床症状^[13]。体积较小的腮腺区淋巴管瘤可以先观察，如肿物较大影响外观、瘤体破溃感染、囊内出血突然增大或影响患儿呼吸及吞咽则需进行干预^[4]。淋巴管瘤的治疗主要包括硬化剂注射治疗和手术切除^[14]。腮腺区淋巴管毗邻关系复杂，手术切除不易彻底，且位置相对表浅多不造成呼吸道梗阻，可首选硬化剂注射治疗。本组 46 例腮腺区淋巴管瘤患儿接受多次博来霉素注射治疗取得了一定的疗效，但仍有 26 例患儿接受了手术治疗及术腔博来霉素盥洗。

3.3 腮腺区良恶性肿瘤

文献报道仅 5% 的腮腺区肿瘤发生于儿童及青少年，80% 的腮腺肿瘤为良性。美国儿童腮腺恶性肿瘤的发生率为 0.8/1 000 000 左右^[15]。一般来说恶性肿瘤多为低分化，小于 10 岁的腮腺区恶性肿瘤则以高分化多见。最常见的良性肿瘤和恶性肿瘤分别是多行性腺瘤和黏液表皮样癌^[16]。本研究收治腮腺恶性肿瘤 3 例，分别为腮腺区淋巴瘤 1 例、腮腺区横纹肌肉瘤 1 例、腮腺区黏液表皮样癌 1 例。收治腮腺区脂肪瘤 4 例(2.35%)，既往的

临床研究提示腮腺区脂肪瘤较少见^[17]，其发生率占腮腺肿瘤的 0.5%~4.4%；1959—2009 年文献报道中符合纳入标准的腮腺区脂肪瘤共 70 例^[18]。作者推测儿童腮腺区脂肪瘤可能较成人有着更高的发生率，但仍需进一步的研究证明。

本组收治的 1 例 11 岁男性腮腺区 Mikulicz 病较为特殊，表现为单侧腮腺区病损，无其他系统症状，行腮腺浅叶切除后患儿未出现并发症，随访至观察周期结束未出现复发。而浅叶切除是腮腺浅叶肿物的主要治疗手段^[19]。Mikulicz 病可表现为原因不明的双侧慢性泪腺炎，同时伴双侧腮腺肿大，多见于青壮年，泪腺肿大柔软，有的还有肝、脾、淋巴结肿大^[20]。本组还收治了 2 例腮腺区 Castleman 病(Castleman disease, CD)，男女各 1 例，男性患儿 4 月龄，女性患儿 11 岁，手术完整切除肿块，术后病理均为透明管型，随访至观察周期结束均未复发。CD 是一种较少见以无痛性淋巴结肿大为特征的交界性淋巴组织增生性病变^[21]，根据累及范围分为单中心型 CD (UCD) 和多中心型 CD (MCD)。UCD 病变局限，不易复发，手术切除可痊愈，定期随访即可；MCD 可发生恶变或转化成淋巴瘤，手术往往不能根治，需辅以术后放化疗^[22]。

3.4 腮腺区炎性病变

腮腺区炎性病变主要包括慢性腮腺炎、淋巴结核、淋巴上皮病、慢性淋巴结炎、肉芽肿、腮腺良性肥大、结节病^[23]。本组收治炎性病变 8 例(4.71%)，其中腮腺区脓肿 3 例、腮腺区淋巴结炎 3 例、腮腺区肉芽肿 1 例、腮腺区结核 1 例，炎性病变比例明显小于文献报道，可能与我科收治的病种特点有关。腮腺区脓肿临床表现以发热、腮腺肿胀疼痛、白细胞增多为主，超声表现为肿块边界不清，回声不均匀，可见浑浊液性暗区^[24]。目前以药物治疗、切开引流和手术切除为主^[25]，本组 3 例腮腺区脓肿均进行了局部切排手术，术后脓肿消退，复查 B 超回声均匀对称。腮腺区慢性淋巴结炎是指位于腮腺浅面及腮腺内淋巴结发生的慢性增殖性炎症，在临床表现及影像学检查等方面都与腮腺区良性肿瘤表现相似，易误诊。腮腺区结核通常表现为单发或多发肿块，可合并全身症状，多在手术后明确病理。本组除腮腺区脓肿外，其余 5 例患儿均行手术切除，术后状况良好，随访至观察周期结束均未出现面瘫和复发。

参考文献

- [1] 尹德佩, 窦训武, 杨素娜, 等. 儿童腮腺区脉管瘤的外科治疗[J]. 国际口腔医学杂志, 2010, 37(6): 659—

- 660.
- [2] 刘宇楠,刘宇. 婴幼儿腮腺区血管瘤治疗的研究进展[J]. 国际口腔医学杂志,2012,39(4):487-490.
- [3] 李思源,郭雪生,单小峰,等. 177 例儿童口腔颌面部恶性肿瘤临床病理分析[J]. 中国口腔颌面外科杂志,2016,14(2):134-139.
- [4] 李万鹏,赵利敏,徐宏鸣,等. 婴儿颈部巨大囊性淋巴管瘤 3 例治疗体会[J]. 中国眼耳鼻喉科杂志,2017,17(5):345-347.
- [5] 杨学芳,王亚娟,丁翎君,等. 新生儿化脓性腮腺炎 13 例临床分析[J]. 中华新生儿科杂志,2018,33(1):56-58.
- [6] Arnot RS. Defects of the first branchial cleft[J]. S Afr J Surg,1971,9(2):93-98.
- [7] Shinn JR,Purcell PL,Horn DL,et al. First branchial cleft anomalies:otologic manifestations and treatment outcomes[J]. Otolaryngol Head Neck Surg,2015,152(3):506-512.
- [8] Li W,Xu H,Zhao L,et al. Branchial anomalies in children:A report of 105 surgical cases[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol,2018,104:14-18.
- [9] Teo NW,Ibrahim SI,Tan KK. Distribution of branchial anomalies in a paediatric Asian population[J]. Singapore Med J,2015,56(4):203-207.
- [10] Inarejos CE,Navallas M,Tolend M,et al. Imaging Evaluation of Pediatric Parotid Gland Abnormalities[J]. Radiographics,2018,38(5):1552-1575.
- [11] Ren W,Li S,Gao L,et al. Low-dose propranolol for infantile hemangioma of the head and neck: Analysis of 23 consecutive patients[J]. Pediatr Int,2017,59(2):213-217.
- [12] 顾美珍,吴佳樵,赵利敏,等. 婴幼儿腮腺血管瘤口服盐酸普萘洛尔片治疗体会[J]. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志,2013,48(9):769-770.
- [13] Mirza B,Ijaz L,Saleem M,et al. Cystic hygroma:an overview[J]. J Cutan Aesthet Surg,2010,3(3):139-144.
- [14] Ghritlaharey RK. Management of giant cystic lymphangioma in an infant[J]. J Clin Diagn Res,2013,7(8):1755-1756.
- [15] Gontarz M,Wyszynska-Pawelec G,Zapala J. Primary epithelial salivary gland tumours in children and adolescents[J]. Int J Oral Maxillofac Surg,2018,47(1):11-15.
- [16] Mehta D,Willging JP. Pediatric salivary gland lesions[J]. Semin Pediatr Surg,2006,15(2):76-84.
- [17] Tilaveridis I,Kalaitidou I,Pastelli N,et al. Lipoma of Parotid Gland; Report of Two Cases[J]. J Maxillofac Oral Surg,2018,17(4):453-457.
- [18] Starkman SJ,Olsen SM,Lewis JE,et al. Lipomatous lesions of the parotid gland:analysis of 70 cases[J]. Laryngoscope,2013,123(3):651-656.
- [19] 张敏,贾志宇,刘树妍,等. 腮腺良性肿瘤浅叶部分切除术与浅叶切除术的循证医学分析[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2019,33(9):875-882.
- [20] Tanaka A,Moriyama M,Nakashima H,et al. Th2 and regulatory immune reactions contribute to IgG4 production and the initiation of Mikulicz disease[J]. Arthritis Rheum,2012,64(1):254-263.
- [21] Rhee F V,Stone K,Szmania S,et al. Castleman disease in the 21st century: An update on diagnosis, assessment, and therapy[J]. Clin Adv Hematol Oncol,2010,8(7):486-498.
- [22] Munshi N,Mehra M, van de Velde H, et al. Use of a claims database to characterize and estimate the incidence rate for Castleman disease[J]. Leuk Lymphoma,2015,56(5):1252-1260.
- [23] 马欣,王永功. 腮腺区包块的临床诊断与治疗分析[J]. 口腔医学研究,2012,28(9):918-919.
- [24] 李晓娜. 高频彩色多普勒超声诊断腮腺区肿块的价值[J]. 中国社区医师(医学专业),2012,14(7):240-241.
- [25] Tian X,Eldadah M,Cheng W. Neonatal Suppurative Parotitis; Two Cases[J]. Pediatr Infect Dis J,2016,35(7):823-824.

(收稿日期:2019-11-09)