

婴幼儿先天性梨状窝瘘支撑喉镜下内镜辅助低温等离子射频消融术疗效分析

郭宇峰¹ 高兴强¹ 邓海燕¹

[摘要] 目的:探讨婴幼儿先天性梨状窝瘘(CPSF)支撑喉镜下内镜辅助低温等离子射频消融术的临床疗效。方法:15例 CPSF 患儿行支撑喉镜下内镜辅助低温等离子射频消融术,术后予阶段性密切随访,均行颈部彩超及电子喉镜检查,并分析疗效。结果:15例患儿均顺利完成手术,术后无咽瘘、吞咽困难、内瘘口周围及瘘管远端感染。所有患儿术后随访 3~36 个月,无一例复发。结论:支撑喉镜下内镜辅助低温等离子射频消融术,具有术中出血少、损伤小、视野清晰等优点,安全有效,值得临床推广。

[关键词] 先天性梨状窝瘘;婴幼儿;低温等离子射频消融术;内镜术

doi:10.13201/j.issn.2096-7993.2020.05.017

[中图分类号] 767.04 **[文献标志码]** A

Clinical efficacy of low-temperature radiofrequency ablation assisted by endoscopy for the treatment of congenital pyriform sinus fistula in infants

GUO Yufeng GAO Xingqiang DENG Haiyan

(Department of Otolaryngology, Xiamen Children's Hospital, Xiamen, 361021, China)

Corresponding author: GAO Xingqiang, E-mail: gaoxqxm@163.com

Abstract Objective: To discuss the clinical efficacy of low-temperature radiofrequency ablation assisted by endoscopy for the treatment of congenital pyriform sinus fistula in infants. **Method:** Clinical data of 15 patients with CPSF received the low-temperature radiofrequency ablation assisted by endoscopy under laryngoscope were reviewed. After the operation, patients were followed up closely at different stages. All patients underwent neck color doppler ultrasound and electronic laryngoscopy, and the results were analyzed. **Result:** The operation of 15 children was successfully completed without pharyngeal fistula, dysphagia, peristoma and distal fistula infection. Followup survey ranged from 3 months to 3 years and no one recurred. **Conclusion:** Low-temperature radiofrequency ablation assisted by endoscopy is a promising method for the CPSF with less trauma, less haemorrhage and good vision. It is safe and effective for the treatment of CPSF in infants and children, and is worthy of clinical promotion.

Key words congenital pyriform sinus fistula; infant; low-temperature radiofrequency ablation; endoscopy

先天性梨状窝瘘(congenital pyriform sinus fistula, CPSF)是一种罕见的颈部鳃源性疾病,包括第三和第四鳃裂畸形,占有鳃源性畸形的 1%~10%^[1]。90%的 CPSF 发生在左颈,瘘管开口于梨状窝底部,终于甲状腺腺体内或穿出腺体向下延伸至颈根部(颈鞘内侧)。临床上在婴幼儿期即表现为反复发作的下颈部肿痛或脓肿,以左侧多见。患儿常因颈部疼痛而表现为斜颈;炎症波及喉返及喉

上神经时可出现声音嘶哑;脓肿过大可压迫气道,引起呼吸困难,甚至危及生命^[2]。因此病罕见,又常首发于婴儿时期,首诊常常误诊为淋巴结炎等疾病而延误后续治疗。且此病手术治疗方式多样,国内尚无统一标准,可行颈部开放性手术或内镜下手术。与传统开放性手术比较,内镜辅助低温等离子射频消融治疗出血少、术野清晰、手术时间短、复发率低^[3]。我科 2015-07—2018-08 对收治的 15 例 CPSF 患儿行支撑喉镜下内镜辅助低温等离子射频消融术,疗效较好,报告如下。

¹厦门市儿童医院耳鼻喉科(福建厦门,361021)
通信作者:高兴强, E-mail: gaoxqxm@163.com

[4] 张英. 鼻骨骨折的影像学诊断[J]. 中国中西医结合耳鼻咽喉科杂志, 2007, 15(1): 51-53.
[5] 吴健, 廖华蓉, 周林, 等. 鼻骨骨折的诊断与整复[J]. 中华实用诊断与治疗杂志, 2008, 22(11): 856-857.
[6] 张艾红. 鼻骨骨折的影像学检查比较[J]. 中国实用医药, 2011, 11(32): 80-81.
[7] Hwang K, You SH, Kim SG, et al. Analysis of nasal

bone fractures: a six-year study of 503 patients[J]. J Craniofac Surg, 2006, 17(2): 261-264.
[8] Hung T, Chang W, Vlantis AC, et al. Patient satisfaction after closed reduction of nasal fractures[J]. Arch Facial Plast Surg, 2007, 9(1): 40-43.

(收稿日期: 2019-08-25)

1 资料与方法

1.1 临床资料

15 例婴幼儿 CPSF 患儿,男 6 例,女 9 例;发病时年龄 3 个月~3.5 岁,平均 1.9 岁;病程 2~12 个月,平均 5 个月;手术时年龄 8 个月~4 岁,平均 2.3 岁;左侧梨状窝瘘 14 例,右侧 1 例。以颈部疼痛伴或不伴脓肿形成来我科就诊的患儿 13 例(包括颈部巨大脓肿导致呼吸吞咽困难 2 例,颈部脓肿破溃流脓 2 例,未破溃 6 例,单纯下颈部小包块 3 例);以咽部不适伴吞咽疼痛首诊内科后转我科确诊 1 例;以斜颈首诊骨科后转我科确诊 1 例。15 例患儿中 3 例曾有颈部脓肿切开引流病史,其中 1 例患儿行反复颈部脓肿切开引流术 3 次,目前切排创面瘢痕愈合。

1.2 诊断方法

所有患儿初诊时均有不同程度的颈侧肿胀(图 1),需与先天性皮样囊肿合并感染、先天性第二鳃裂瘘管合并感染、先天性甲状舌管囊肿、颈部淋巴结结核、先天性脉管畸形合并感染等进行鉴别诊断。术前在病情允许的情况下尽可能完善相关检查,包括颈部彩超、电子喉镜及颈部 CT,诊断不明确时可下行下咽造影。典型炎症期患者的颈部彩超(图 2)可见瘘管(混合性回声区)上缘达梨状窝,下缘累及甲状腺。炎症期颈部电子喉镜检查(图 3)可见梨状窝处黏膜水肿,偶见小瘘口,挤压颈部肿物见瘘口处乳白色分泌物渗出。颈部 CT(图 4)炎症期显示颈部囊实性肿块,病灶上可至声门水平,梨状窝受压变形,下与甲状腺分界不清。梨状窝瘘

最终确诊还是以全身麻醉内镜检查,如食管镜或支撑喉镜下显露梨状窝内尖部或底部瘘口为准(图 5)。

1.3 治疗方法

15 例患儿在炎症感染期予抗感染治疗,其中 9 例行脓肿切开引流,并根据细菌培养结果调整抗生素,其余 6 例予经验性抗感染治疗。所有患儿经过平均 2 周左右抗感染、局部换药等治疗,待炎症控制后,患儿颈部肿胀基本消退,脓肿切口无炎性渗出且瘢痕愈合,颈部无明显压痛,再行支撑喉镜下内镜辅助低温等离子梨状窝瘘射频消融术。

术中行气管插管复合全身麻醉。经口导入直达喉镜(德国 Stoze),暴露患侧梨状窝,将 0°鼻内镜(德国 Stoze)探入直达喉镜,外接内镜显示器,行内镜下辅助操作。内镜下清晰暴露患侧梨状窝内瘘口、Betz 黏膜皱襞(梨状窝内侧与食管入口处的纵向黏膜皱襞)及食管入口。助手按患侧甲状软骨板,充分暴露梨状窝瘘口。选用等离子手术系统,采用喉刀(70 型刀头)行梨状窝瘘口消融(切割档功率为 7 档,止血档功率为 3 档),消融梨状窝瘘口及周围黏膜。消融深度:梨状窝底部黏膜下约 5 mm,需达患侧甲状软骨板。广度:以内瘘口为中心,直径 10 mm 左右的梨状窝底部黏膜,同时切除 Betz 黏膜皱襞(图 6)。消融时注意控制喉刀方向,向梨状窝前外侧甲状软骨板方向轻压刀头,避免损伤内下侧喉返及喉上神经。术毕予等离子刀电凝止血,检查伤口无渗血。术后常规留置胃管 2 周,予抗生素预防感染。

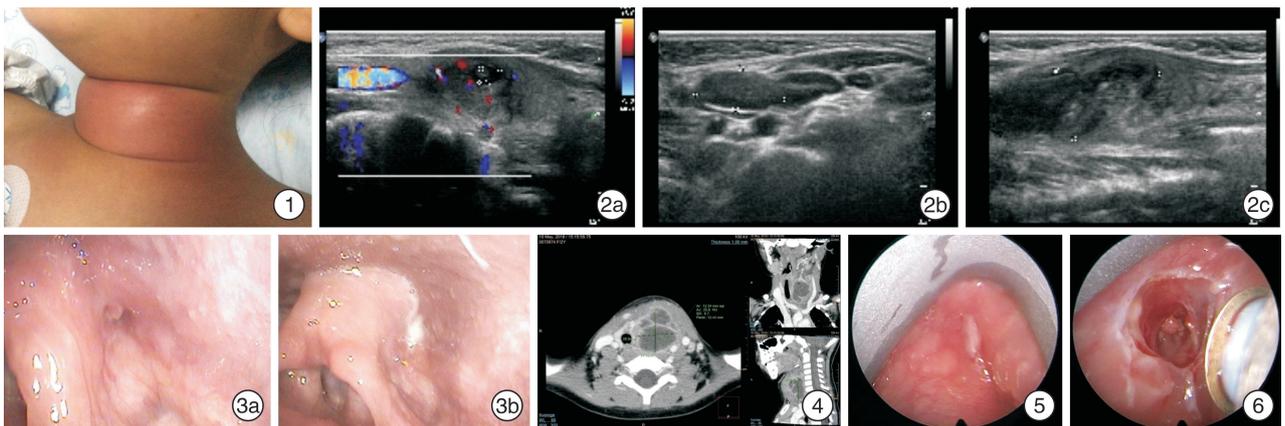


图 1 颈部脓肿形成 颈部皮肤弥漫性肿胀,皮温高,压痛明显,皮肤紧张度高; 图 2 颈部彩超所示 2a:可见瘘管(混合性回声区)丰富血流信号,左侧甲状腺回声增粗不均,血供丰富;2b:颈部探及多个低回声结节;2c:混合性回声区界欠清,向内侧延伸,上缘达梨状窝,下缘累及甲状腺; 图 3 电子喉镜检查 3a:可见左侧梨状窝处黏膜水肿,梨状窝底部见一小瘘口;3b:挤压颈部肿物见梨状窝瘘口处乳白色分泌物渗出; 图 4 颈部 CT 所示 炎症期显示颈部囊实性肿块,病灶上可至声门水平,梨状窝受压变形,下与甲状腺分界不清; 图 5 支撑喉镜下所示 显露梨状窝内尖部瘘口,挤压颈部肿物见瘘口处乳白色分泌物渗出; 图 6 梨状窝瘘支撑喉镜下低温等离子射频消融术 消融深度为梨状窝底部黏膜下 5 mm,底部达甲状软骨板;广度以内瘘口为中心,直径 10 mm 左右的梨状窝底部黏膜,同时切除 Betz 黏膜皱襞。

1.4 术后随访时间

所有患儿于术后2周、3个月、半年、1年、2年、3年等时间点随访。随访内容包括病史询问、生长发育评估、颈部彩超、电子喉镜检查等。

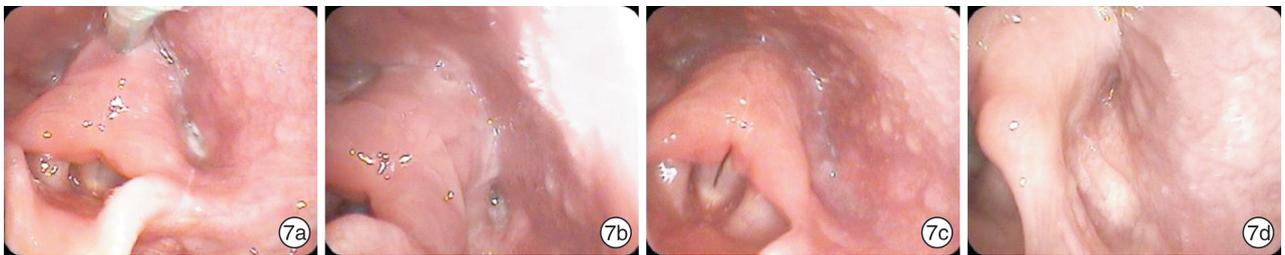
1.5 疗效判定标准

同时符合以下2个标准判定为治愈:术后随访期内无吞咽疼痛、无患侧下颈肿痛;术后3个月下咽造影、CT、MRI或内镜复查证实梨状窝内瘘口瘢痕形成、闭合。反之,若随访期内出现上述临床症状或复查内瘘口未闭,则为复发。

2 结果

15例患儿均一次顺利完成手术,术后恢复佳,无大出血,无患侧颈部肿胀疼痛等症状。2例患儿

术后出现一过性声音嘶哑,分别在术后1周、2周左右恢复正常;8例患儿术后1周内有一过性体温升高,予抗生素治疗后好转;10例患儿术后有轻微吞咽不适感,无特殊处理,1周左右逐渐减轻;3例患儿首次胃管进食后出现呕吐症状,未引起严重并发症。所有患儿术后无咽痿、吞咽困难、内瘘口周围及瘘管远端感染。随访3~36个月,其中7例随访2年以上,4例随访1年,3例随访半年,1例随访3个月(图7)。15例患儿无一例复发,治愈率达100%。随访过程中均无明显颈痛及颈部脓肿形成,正常进食后无吞咽疼痛。术后定期电子喉镜检查术侧梨状窝无明显内瘘口,瘢痕愈合佳。



7a:术后1周,带胃管,创面白膜形成,梨状窝黏膜肿胀;7b:术后2周,胃管拔除,创面白膜基本脱落,周围组织肿胀消退;7c:术后3个月,创面黏膜光滑,白膜基本脱落完全;7d:术后1年,梨状窝黏膜无异常,底部瘢痕形成,未见瘘口复发。

图7 CPSF等离子射频消融术后随访

3 讨论

3.1 CPSF的临床表现及诊断方法

CPSF较为罕见,根据有无内、外瘘口可分为窦道型、瘘管型和囊肿型。其中内瘘口开口于梨状窝底部的窦道型最常见;瘘管型多为继发感染、脓肿破溃或反复医源性切开引流所致,外瘘口多见于胸锁乳突肌中下1/3前缘;囊肿型则多见于胎儿或新生儿^[4]。本组收治15例患儿,窦道型13例,而瘘管型仅2例。15例患儿均为婴幼儿期发病,主要临床表现为颈部脓肿形成,严重者可引起呼吸困难甚至窒息;偶有出现高热、菌血症,后期出现感染性休克甚至死亡。CPSF患儿病情变化较大,轻症仅为颈部脓肿疼痛,重症可致死亡,在临床中应谨慎诊治。若患儿出现高热、呼吸困难等,需及时行颈部脓肿切开引流,并根据引流液细菌培养结果调整抗生素的使用。

CPSF无典型临床表现,需与多种先天性颈部疾病相鉴别。通常可先行颈部影像学检查,如CT或MR等,典型病例CT可见梨状窝-甲状腺水平条索状、隧道样异常密度影,增强后可环形强化。CT诊断率为62%~100%。CT的不足在于辐射量较大,小儿需镇静才能进行。MR的缺点在于检查时间长,费用高,需镇静才能进行。下咽造影虽

然是诊断CPSF最直观的术前检查,可清晰显示梨状窝形态改变、瘘管存在和走行,但婴幼儿在服用对比剂、做Vasalva动作时不能配合,从而难以在婴幼儿中开展。本组15例患儿均未行下咽造影。电子喉镜检查在婴幼儿中相对容易开展,患儿炎症期可见患侧梨状窝黏膜高度水肿,偶可见梨状窝底内瘘口,挤压患侧脓肿,可见脓液从患侧梨状窝涌出。若见梨状窝内瘘口,即可确诊为梨状窝瘘。但此法阳性率较低,因患侧梨状窝黏膜肿胀,内瘘口通常不能窥及。颈部彩超无典型表现,易误诊为其他炎性病变。故诊断此病需有经验的医生结合各项辅助检查综合判断。本组15例患儿中,12例经CT诊断为CPSF;1例经颈部彩超诊断;2例不能明确诊断,结合患儿的病史、颈部彩超、CT、电子喉镜等检查,考虑梨状窝瘘可能,行全身麻醉支撑喉镜检查,探及梨状窝内尖部内瘘口,明确诊断。因此,对于不能确诊的颈部脓肿,若高度怀疑此病,可行全身麻醉支撑喉镜检查以确诊。

3.2 内镜辅助低温等离子射频消融术的优势

本组15例患儿均在支撑喉镜内镜辅助下行低温等离子射频消融术。选择此术式有以下几方面的考虑:①患儿手术时平均年龄2.3岁,若行开放术式,则损伤大,恢复慢,患儿家属接受度较低;且

开放术式手术复杂,对术者要求高,需精细解剖保护喉返、喉上神经,高位结扎梨状窝瘘管;术后并发症多,如术后出血、声嘶、呛咳、咽瘘、伤口感染等;若不能结扎好内瘘口,术后复发率高^[5]。②选择等离子射频消融梨状窝瘘管较 CO₂ 激光烧灼、电烧灼等常见烧灼方式优势明显^[6]。CO₂ 激光烧灼面较浅,不能深入瘘管,可能造成瘘口封闭不全导致复发^[7];单极电烧灼虽然目前开展最多,长期疗效较好,但热损伤大,术后并发症较多,特别是术后喉上神经及喉返神经的热损伤率高^[8];低温等离子射频消融烧灼温度低,对周围组织损伤小,且等离子喉刀可深入瘘管,将内瘘口包括深部 1 cm 左右的瘘管全层消融,等离子刀自带止血功能,烧灼后即可止血,术中可做到无出血,无副损伤。③患儿年龄小,喉腔窄小,支撑喉镜管腔狭小,直视下操作极为困难。在内镜下辅助操作,借助内镜将视野放大到电视屏幕上,可清晰观察术腔,对于提高手术疗效及避免因操作失误而引起的神经损伤有重要帮助。

3.3 术后密切随访及病例回顾分析

本组 15 例患儿均进行密切的术后随访,均未复发,治愈率达 100%。术后患儿胃管鼻饲 2 周后再进食半流质 1 周,无明显不适后尝试正常饮食。患儿术后 5~7 d 可带胃管出院,术后 2 周及 12 周复诊行电子喉镜检查。术后 2 周喉镜检查结果大致为梨状窝黏膜稍水肿,底部可见创面白膜逐渐脱落,适时拔除胃管;术后 12 周时梨状窝黏膜无水肿,底部创面见内瘘口瘢痕形成、闭合。术后 2 例患儿出现一过性的声音嘶哑,考虑等离子烧灼时过于靠近瘘口内下侧的喉上/喉返神经,造成一过性的热损伤,2 例患儿分别在术后 1 周、2 周恢复正常。半数以上患儿术后体温上升,最高达 39℃,伴有颈侧疼痛,考虑为瘘管远端脓肿残留感染所致,予抗生素抗感染 1 周后均好转,随访过程中无再复发。所有患儿均在感染控制后即行手术治疗,但患侧颈部瘘管远端可能仍残留感染,在围手术期予抗

感染治疗,防止术后远端感染复发。本组患儿均无复发的可能原因为:①本组例数较少,部分患儿随访时间不够长,需待更多的病例积累及持续随访观察疗效;②本组大部分患儿为窦道型,仅 2 例存在外瘘口,而术前经抗感染及清创换药治疗后外瘘口均已瘢痕愈合。复发可能与梨状窝瘘分型相关,窦道型适合行等离子内瘘口消融术。

综上,内镜辅助低温等离子射频消融梨状窝内瘘口有其直观、微创、简单、疗效显著、复发率低等优势,逐渐成为婴幼儿 CPSF 的主流手术方式,值得临床推广。

参考文献

- [1] Abbas PI, Roehm CE, Friedman EM, et al. Successful endoscopic ablation of a pyriform sinus fistula in a child: case report and literature review [J]. *Pediatr Surg Int*, 2016, 32(6): 623-627.
- [2] 王凌芳, 刘丽, 桑建中, 等. 支撑喉镜下低温等离子烧灼治疗 146 例先天性梨状窝瘘的疗效分析 [J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2018, 32(8): 610-613.
- [3] 董锦锦, 田秀芬. 先天性梨状窝瘘的诊断与治疗经验探讨 [J]. *中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2018, 53(6): 444-447.
- [4] 刘大波. 临床小儿耳鼻喉疾病诊疗学 [M]. 北京: 科学技术文献出版社, 2017: 434-435.
- [5] Arunachalam P, Vaidyanathan V, Sengottan P. Open and Endoscopic Management of Fourth Branchial Pouch Sinus-Our Experience [J]. *Int Arch Otorhinolaryngol*, 2015, 19(4): 309-313.
- [6] 纪尧峰, 赵振鹿, 周钦, 等. 低温等离子微创治疗儿童梨状窝瘘 [J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2019, 33(5): 461-463.
- [7] 雷文斌, 徐扬, 邓洁, 等. CO₂ 激光在咽喉科疾病治疗中的应用进展 [J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2018, 32(19): 1447-1450.
- [8] Ishinaga H, Kobayashi M, Qtsu K, et al. Endoscopic electrocauterization of pyriform sinus fistula [J]. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2017, 274(11): 3927-3931.

(收稿日期: 2019-09-05)