

• 经验与教训 •

误诊为神经鞘瘤的纵隔支气管囊肿1例

潘中静¹ 邱子隽² 吕丹¹ 陈飞¹

[摘要] 报告1例误诊为神经鞘瘤的纵隔支气管囊肿。患者既往无胸痛、呼吸困难、咳嗽、咳痰、咯血等症状,胸部增强CT示纵隔肿物,边界清,较大横截面为3.9 cm×3.4 cm,未见明显强化,初步诊断考虑神经鞘瘤、气管囊肿或食管囊肿可能。全身麻醉下经颈入路切除纵隔肿瘤,术中发现肿块位于中纵隔和上纵隔,直径约4 cm,表面光滑,内含胶冻样囊液,与食管和气管粘连。术后病理学诊断为支气管源性囊肿。患者术后恢复良好,随访至今未复发。

[关键词] 支气管囊肿;神经鞘瘤;误诊

DOI:10.13201/j.issn.2096-7993.2022.11.013

[中图分类号] R562.2 **[文献标志码]** B

A case of mediastinal bronchial cyst misdiagnosed as schwannoma: a case report

PAN Zhongjing¹ QIU Zijun² LV Dan¹ CHEN Fei¹

(¹Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, West China Hospital, Sichuan University, Chengdu, 610041, China; ²West China School of Medicine, Sichuan University)

Corresponding author: CHEN Fei, E-mail: c3h3f3@163.com

Summary A case of mediastinal bronchial cyst misdiagnosed as schwannoma is reported. The patient had no chest pain, dyspnea, cough, sputum and hemoptysis in the past. Chest enhanced CT showed mediastinal mass with clear boundary. The larger cross-section was about 3.9 cm × 3.4 cm, and there was no obvious enhancement. The primary diagnosis was considered as schwannoma, tracheal cyst or esophagus cyst. The mediastinal tumor was resected via cervical approach under general anesthesia. During the operation, it was found that the mass was located in the middle and upper mediastinum, with diameter of about 4 cm and a smooth surface, containing gelatinous cystic fluid and adhered to the esophagus and trachea. Postoperative pathological diagnosis was bronchogenic cyst. The patient recovered well after the operation, and has not recurred since follow-up.

Key words bronchogenic cyst; schwannoma; misdiagnose

1 病例报告

患者,女,29岁,因体检发现上纵隔肿物9月余于2021年6月4日入院。无呼吸困难、进食梗阻、饮水呛咳、声音嘶哑、咯血及发热等症状。既往辅助检查(2020年9月):①胃镜:示胃体下段黏膜隆起,外压所致或蠕动波?②胸部增强CT:中上纵隔见均匀软组织密度肿块,3.4 cm×2.9 cm×3.7 cm大小,未见明显强化,推挤气管及主动脉弓,与气管及食管分界不清。初步诊断:①神经鞘瘤?②食管肿瘤?③气管肿瘤?入院后辅助检查:①血常规、凝血功能、生化、输血前全套及电子喉镜检查均未见明显异常;②复查胸部增强CT:中上纵隔、气管食管左侧旁见一类圆形囊状低密度影,较

大截面3.9 cm×3.4 cm,边界清楚,平扫值约54 HU,增强后未见明显强化;推挤气管与主动脉弓,与气管及食管分界不清(图1)。术前检查未见明显手术禁忌证,于2021年6月8日于全身麻醉下行经颈入路纵隔肿物切除术。术中所见(图2):①肿物位于中上纵隔内,上界为锁骨头平面,下界达主动脉弓平面;②肿物表面光滑,直径约4 cm,内含黏稠、深褐色、胶冻样囊液;③左侧喉返神经位于肿物表面,能分离;④肿物与食管及气管分界不清,粘连明显;⑤囊壁右下方与第7~9气管环侧壁不能分离,完整切除囊壁后见气管壁有缺损。术中同期进行气管缺损缝合修补,并于术腔安置引流管2根。由于切除了部分食管肌层,为降低因食管破裂或感染所导致的纵隔感染风险,术中安置胃管。因术腔与气管相通,术后给予抗生素预防感染,患者未出现发热、声音嘶哑、饮水呛咳等症状,未查出

¹四川大学华西医院耳鼻咽喉头颈外科(成都,610041)

²四川大学华西临床医学院

通信作者:陈飞,E-mail:c3h3f3@163.com

皮下气肿。病理检查结果:(纵隔)支气管囊肿(bronchogenic cyst, BC)。术后第 3 天和第 4 天各

拔出 1 根引流管;术后第 7 天拔出胃管,患者经口进食良好。现已随访 2 月余,未见感染及复发。

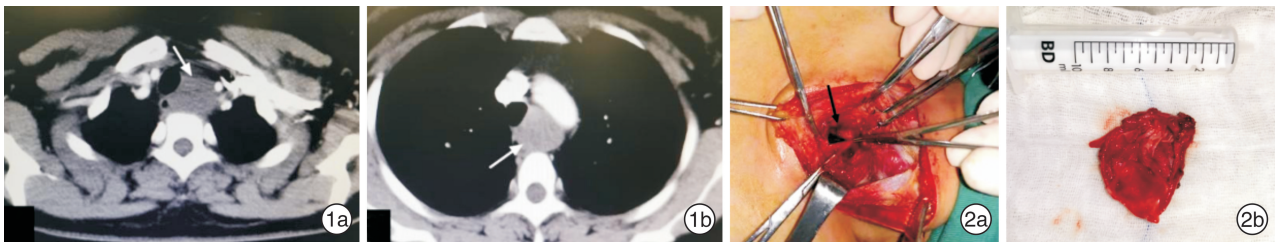


图 1 术前影像学检查 1a:肿物与食管、气管粘连紧密,分界不清;1b:肿物推挤主动脉弓; 图 2 术中所见 2a:囊腔(箭头所示);2b:囊壁。

2 讨论

BC 发病率较低,为 1/42 000~1/68 000,是胚胎早期支气管发育异常导致的先天性良性疾病,与前肠发育畸形相关^[1]。该病可发生于任何年龄,多见于中青年,男性多于女性。其发病机制尚未完全明确,目前较为认可的是胚芽脱落移位假说。该假说认为发病部位与胚胎发育异常的时间有关,异常胚芽形成较早者 BC 位于纵隔内,形成较晚者则位于肺实质,另外在胚胎发育第 6 周时,异常胚芽若迁移到更远的部位则形成异位 BC^[2]。因此,临床上按发病部位将 BC 分为纵隔型、肺内型和异位型,其中以纵隔型最常见,约占 90%^[3],异位型较罕见。纵隔 BC 可发生于纵隔任何部位,以气管旁或气管隆突下多见,且多发生于右侧^[4]。术前确诊较困难,初诊的误诊率为 28.3%~70.6%^[5]。

BC 临床症状多不典型,且生长缓慢,常偶然发现,本例患者是在车祸后体检时被无意发现。但症状可随肿物体积的增大而发生变化,增大的囊肿可对周围临近组织造成压迫或继发感染,致患者出现发热、咳嗽、咳痰、胸痛、呼吸困难和发绀等症状^[4]。若 BC 未与支气管相通则形成液体囊肿,也称闭合囊肿,其囊液为清亮透明的液体或不透明的浆液性或黏液性液体,本例患者为闭合囊肿。若 BC 与支气管相通,囊肿内的液体部分排出,气体进入囊腔形成气液囊肿;若囊液全部排出,则形成含气囊肿。在临床上,超声、CT 及 MRI 等影像学检查可帮助诊断,能显示肿物大小、位置、血供特点及与周围组织关系等。在超声检查中,本病通常表现为类圆形的低回声液性囊肿,囊壁薄而均匀,边界相对清晰;当囊肿合并感染时透声差,可呈现混杂细密点状回声^[6]。CT 表现与形态、大小、病灶的位置及囊肿内容物有关。未受压时一般表现为圆形、类圆形等边界较清楚的肿物;当与邻近结构相互挤压时,可表现为不规则形边界清楚的肿物,但无破坏侵犯现象。浆液性囊肿多表现为低密度影肿物,其 CT 值多为 0~20 HU,黏液性囊肿的 CT 值较浆液性囊

肿高,为 30~40 HU,且当囊肿内含蛋白成分较多时,CT 值更高,可表现为软组织密度影;当合并感染或出血时,囊内密度可增高并分隔,囊壁可增厚及钙化^[7]。本例患者术前 CT 提示软组织密度影的包块,因此初诊考虑为神经鞘瘤的可能性大。入院后 CT 示 CT 值为 54 HU,不伴强化,考虑为未伴感染且蛋白含量较高的囊肿样病变。另外,CT 检查无法判定肿物性质或术前诊断不明确时,可行 MRI 检查^[8]。本例患者 CT 提示囊肿样病变,故未再进行 MRI 检查。但需注意的是,由于 BC 发病部位及影像学表现的多样性,因此在影像学上易误诊,确诊仍需进行病理学检查,其镜下多表现为囊壁覆以假复层纤毛柱状上皮,囊内壁可查见腺体、平滑肌、软骨及弹力纤维等结构^[9]。

最常见的纵隔 BC 多发生于气管旁、隆突下、后纵隔、肺门等部位,常被误诊为胸腺囊肿、胸腺瘤、囊性畸胎瘤及神经源性肿瘤等^[4]。胸腺囊肿位于胸腺区,囊壁一般较厚,且增强后无强化;而囊性畸胎瘤一般密度较低,但其内成分更多,可见钙化、骨化影及脂肪密度影。既往研究发现,神经鞘瘤内部由富含肿瘤细胞的 Antoni A 区和富含基质的 Antoni B 区构成^[10]。当肿瘤主要为 Antoni B 区构成时,肿瘤呈低密度影,增强后肿瘤不强化或仅轻度强化,与 BC 鉴别困难^[7],本例患者术前被误诊为神经源性肿瘤。此外,纵隔 BC 还应与肺门及纵隔内增大的淋巴结、胸廓内甲状腺、肺癌、食管囊肿等相鉴别。

纵隔 BC 的预后较好,但仍有恶变可能,因此无论囊肿大小、位置、症状,均建议手术切除^[11],且推荐使用胸腔镜手术切除^[2,8]。但本例患者经颈入路行中上纵隔肿物切除术,其原因如下:①虽经颈入路暴露纵隔肿物有困难,但肿物边界较清楚,术中将肿物上提后,能尽量远离大血管,出血风险可控;②进行了充分的术前准备,包括备血及备开胸器械;③考虑与气管关系密切,术中可能会出现气管损伤,经颈入路对气管的探查和修补更容易。但

经该径路行纵隔相关手术对手术医生及团队的要求较高,例如需对颈部及纵隔解剖结构非常熟悉,出现活动性大出血时手术团队成员需配合默契、充分暴露术区,必要时可用头灯或内镜系统辅助,以减少重要血管及神经损伤的风险。

总之,纵隔 BC 在临床上相对少见,且大多数无明显的临床症状。当中上纵隔内呈现软组织密度影或低密度影的包块时,应考虑 BC 的可能。建议先行增强 CT 检查,若未能明确诊断,MRI 可作为补充检查手段。由于该病有恶变可能,因此建议及早进行手术治疗。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

- [1] 陈明井,何玲.纵隔型支气管源性囊肿的 CT 表现[J].中国中西医结合影像学杂志,2020,18(3):278-280.
- [2] 任占良,张卫峰,张泳,等.先天性纵隔型支气管囊肿 2 例报道并文献复习[J].中华胸部外科电子杂志,2019,6(4):265-269.
- [3] 王健,韩雪,周荣真,等.前纵隔支气管源性囊肿的 CT 表现与特征分析[J].浙江实用医学,2019,24(6):422-424.
- [4] 熊廷伟,龚明福,张启川,等.先天性支气管囊肿 CT 及 MRI 诊断价值[J].中华肺部疾病杂志(电子版),2020,13(6):751-754.
- [5] 齐静怀,郭睿,谭祖林,等.颈部支气管源性囊肿生长至上纵隔内 1 例[J].临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2018,32(5):391-392.
- [6] 于淼,王岚,孟祥瑞,等.儿童颈部支气管源性囊肿超声表现 1 例[J].中国介入影像与治疗学,2020,17(1):62-62.
- [7] 王骏,李芳云,梁羨和,等.纵隔支气管囊肿的 CT 影像表现及误诊分析[J].现代医用影像学,2020,29(8):1429-1432.
- [8] 徐树林,胡玲丽,沈金丹,等.纵隔型支气管源性囊肿影像特征及误诊报告[J].临床误诊误治,2021,34(3):10-15.
- [9] 杜亭亭,周莹,钟唐力.口咽旁间隙异位支气管囊肿一例[J].中华放射学杂志,2019,53(5):413-414.
- [10] 顾梁瑞,徐霖,陈文.气管内原发性神经鞘瘤 CT 表现一例[J].影像诊断与介入放射学,2019,28(4):293-294.
- [11] Kimura K, Ogawa H, Jimbo N, et al. A case of leiomyosarcoma originating from a bronchogenic cyst: A case report[J]. Mol Clin Oncol, 2020, 12(3):244-246.
(收稿日期:2021-07-09)
- (上接第 871 页)
- [15] von Brevern M, Bertholon P, Brandt T, et al. Benign paroxysmal positional vertigo: Diagnostic criteria Consensus document of the Committee for the Classification of Vestibular Disorders of the Bárány Society [J]. Acta Otorrinolaringol Esp (Engl Ed), 2017, 68(6):349-360.
- [16] Ogawa Y, Inagaki T, Kondo T, et al. The clinical outcome of the patients with horizontal semicircular canal variants of benign paroxysmal positional vertigo [J]. Acta Otolaryngol, 2022, 142(5):381-387.
- [17] Suratwala NB, Suratwala JN, Bapat MV. Complex benign horizontal canal positional vertigo: new perceptual management[J]. Braz J Otorhinolaryngol, 2022.
- [18] Mandalà M, Salerni L, Nuti D. Benign Positional Paroxysmal Vertigo Treatment: a Practical Update[J]. Curr Treat Options Neurol, 2019, 21(12):66.
- [19] Wang H, Yao Q, Li Z, et al. Characteristics of positional nystagmus in patients with horizontal canal canalolithiasis or cupulopathy[J]. J Neurol, 2019, 266(10):2475-2480.
- [20] 温骏,刘福达,黄焕章,等.良性阵发性位置性眩晕多次耳石复位的影响因素分析[J].中国医药科学,2019,9(1):227-230.
- [21] 杨晓凯,郑炎焱,杨晓国,等.外半规管良性阵发性位置性眩晕复位方法理论探讨[J].中国耳鼻咽喉头颈外科,2016,23(12):681-685.
- [22] Hain TC, Squires TM, Stone HA. Clinical implications of a mathematical model of benign paroxysmal positional vertigo[J]. Ann N Y Acad Sci, 2005, 1039:384-394.
- [23] Otsuka K, Suzuki M, Shimizu S, et al. Model experiments of otoconia stability after canalith repositioning procedure of BPPV[J]. Acta Otolaryngol, 2010, 130(7):804-809.
- [24] 孙家兰,计海峰,吴大玉,等. SRM-IV 诊疗系统与手法复位对不同类型良性位置性眩晕的疗效效果比较[J].内科理论与实践,2017,12(1):54-58.
- [25] 廖瑞兰,刘元侠.心理疏导联合仪器复位治疗良性阵发性位置性眩晕的疗效分析[J].山东医学高等专科学校学报,2021,43(6):450-451.
- [26] 邢娟丽,张婷,张姝,等.快速轴位滚转试验对水平管良性阵发性位置性眩晕定位诊断的意义[J].临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2022,36(6):419-422.
(收稿日期:2022-07-05)