

婴幼儿声门下囊肿 3 例并文献复习

罗晨曦¹ 石秋兰¹ 李琦¹

[摘要] 声门下囊肿是婴幼儿喉鸣的一种少见病因,国内外见少量相关报道。本文报道南京医科大学附属儿童医院诊治 3 例声门下囊肿患儿的临床特征及诊疗经验。3 例患儿均为早产儿,均有气管插管史,症状主要为咳嗽,电子鼻咽镜检查见声门下见球形新生物。颈部 CT 呈稍低密度影,边界欠清,增强后未见明显强化。治疗支撑喉镜下钳夹咬除新生物,低温等离子烧灼囊壁。术后随访均未复发。

[关键词] 声门下囊肿;早产;婴幼儿;喉鸣

DOI:10.13201/j.issn.2096-7993.2023.12.012

[中图分类号] R766 **[文献标志码]** D

Subglottic cysts in infants: a report of 3 cases and literature review

LUO Chenxi SHI Qiulan LI Qi

(Department of Otorhinolaryngology, Children's Hospital of Nanjing Medical University, Nanjing, 210000, China)

Corresponding author: LI Qi, E-mail: liqi71520@sina.com

Abstract Subglottic cyst is a rare cause of laryngeal tinnitus in infants and young children, and only a few cases have been reported at home and abroad. In this paper, we report the clinical characteristics and treatment experience of three cases of subglottic cysts in Children's Hospital of Nanjing Medical University. All the 3 children were premature children, with a history of tracheal intubation, and the main symptoms were coughing and wheezing. Electronic nasopharyngolaryngoscopy revealed spherical neoplasm under the glottis. Neck computed tomography (CT) showed a slightly hypodense shadow with poorly defined borders, and no significant enhancement was observed after enhancement. Under the self-retaining laryngoscope, the new organisms were clamped and nibbled, and the cyst wall was cauterized by low temperature plasma. There was no recurrence in postoperative follow-up.

Key words subglottic cyst; premature delivery; infants and young children; laryngeal stridor

声门下囊肿是少见的引起婴幼儿喉喘鸣的原因之一,近些年随着医学技术的发展使得早产儿存活率提高,声门下囊肿病例数呈逐年递增的趋势,若得不到及时治疗,有可能危及生命。本文对 3 例声门下囊肿患儿的临床资料进行回顾性分析及文献复习。

1 病例报告

2019 年 1 月—2021 年 12 月南京市儿童医院耳鼻喉科收治 3 例声门下囊肿患儿,均为男性,均为早产儿,均有气管插管史,具体如下。

例 1,男,8 个月,出生后即出现喉喘鸣,呼吸困难 II 度,予以气管插管约 6 周,拔管后仍有轻度喘鸣。因感冒呼吸困难加重 1 周入院。入院后体检:III 度呼吸困难,电子喉镜检查:声门下见球形新生物(图 1)。初步诊断:声门下肿物。颈部 CT(平扫+增强)气管上段约平 T4 椎体水平见小包块影,呈稍低密度影,大小约 4 mm×2 mm,边界欠清,相

邻管腔局部狭窄,增强后可见轻度环形强化,强化不均匀,颈部两侧可见淋巴结影,未见明显肿块影(图 1)。予以支撑喉镜下手术,患儿全身麻醉满意后,常规消毒铺巾,以支撑喉镜挑起会厌,充分暴露声门,固定支撑架,喉钳咬除部分新生物,见少许淡黄色液体流出,均给予钳夹咬除部分囊壁,低温等离子烧灼内侧囊壁,置入 4.0 气管套管扩张狭窄气道,退出喉镜,术毕。术后带管进 SICU,标本送病理。病理检查示:囊壁由少量纤维组织构成,内衬柱状上皮,一侧表面被覆复层鳞状上皮,诊断为喉囊肿(图 2)。术后 1 周、1 个月、6 个月、1 年电子喉镜检查未见复发,患儿随访复查电子喉镜,无喉喘鸣、呼吸困难等相关症状,见图 3。

例 2,男,1 岁,出生后即出现呼吸窘迫,呼吸困难 II 度,予以气管插管约 4 周。因反复咳喘半年入院。入院后体检:III 度呼吸困难,电子喉镜检查提示:声门下见球形新生物。初步诊断:声门下肿物。颈部 CT(平扫+增强)示气管左侧壁见囊性突起,测量最大层面为 3.9 mm×4.3 mm×5.3 mm,增强后未见明显强化,相应部位气道变窄。予以支撑

¹南京医科大学附属儿童医院耳鼻喉科(南京,210000)

通信作者:李琦,E-mail:liqi71520@sina.com

喉镜下手术:以支撑喉镜挑起会厌,充分暴露声门,见声门下区明显狭窄,咬除新生物,见少许液体流出,低温等离子烧灼内侧囊壁,置入 4.0 气管套管扩张狭窄气道。手术顺利,术中麻醉满意,术后带管进 SICU。病理诊断为喉囊肿。术后 1 周复查颈部 MRI 示:颈部平扫+增强未见明显异常。术后随访至今未见复发,患儿随访复查电子喉镜时,无喉喘鸣、呼吸困难等相关症状。

例 3,男,9 个月,出生后缺氧、呼吸局促、口唇发紫,呼吸困难 III 度,予以气管插管 4 周。本次因上呼吸道感染呼吸困难加重入院。入院后体检:III 度呼吸困难;电子喉镜检查:声门下见新生物;初步诊断为声门下肿物。予以支撑喉镜下手术,支撑喉镜下见声门下左侧囊性新生物,表面光滑,声门区明显狭窄,喉钳咬除部分新生物,见一囊腔,未见明显囊液,均给予钳夹咬除部分囊壁,低温等离子烧灼内侧囊壁,置入 4.0 气管套管扩张狭窄气道,退出喉镜,术毕。手术顺利、术中麻醉满意、术后带管进 SICU,标本送病检。病理显示,符合喉囊肿。患

儿随访复查电子喉镜,无喉喘鸣、呼吸困难等相关症状。术后随访至今未见复发。

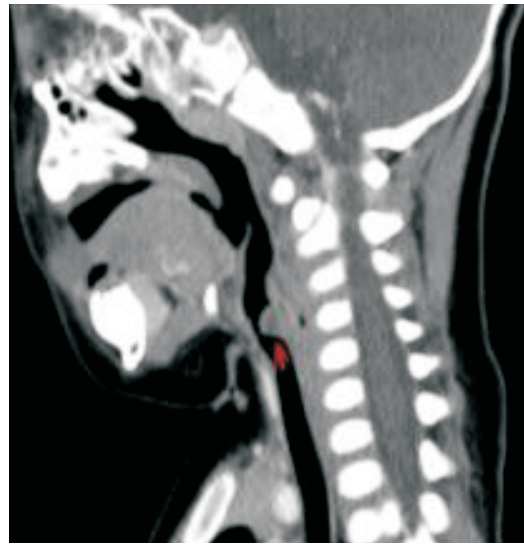
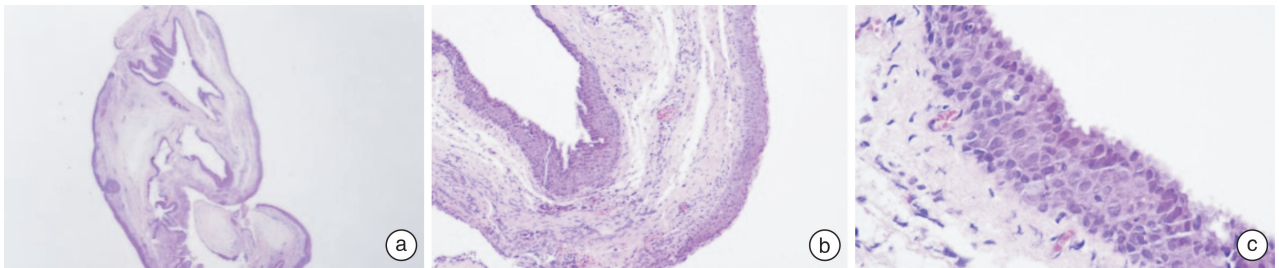
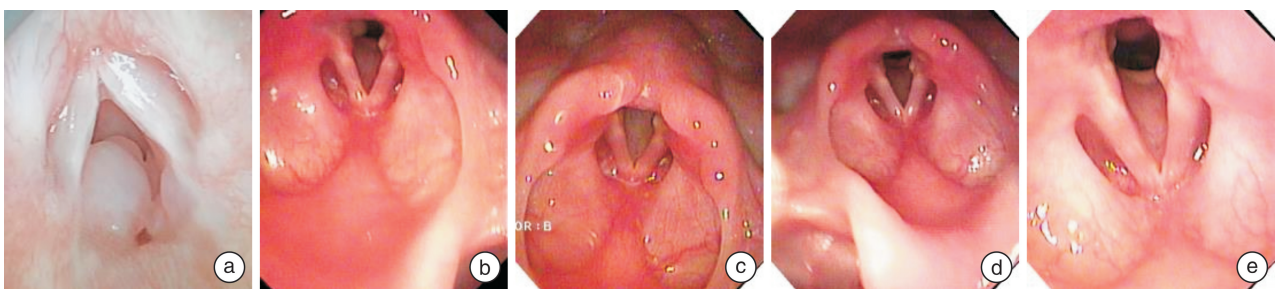


图 1 颈部 CT 检查



a: 苏木精-伊红染色 ×20; b: 苏木精-伊红染色 ×100; c: 苏木精-伊红染色 ×400。

图 2 不同倍数下的组织病理学检查



a: 术前; b: 术后 1 周; c: 术后 1 个月; d: 术后 6 个月; e: 术后 1 年。

图 3 不同随访时间的电子喉镜检查

2 讨论

婴幼儿声门下囊肿是一种较为罕见的引发气道阻塞的良性疾病,但因阻塞气道引起呼吸困难,若不及时治疗可能危及生命。从解剖学上,声门下区是气道最狭窄的部位,当声门下区水平出现直径 1 mm 的环形狭窄时,呼吸横截面积即可减少 60%^[1],因此需引起临床医生的密切关注。

自 Wigger 等^[2]首次报道声门下囊肿病例后,国内外陆续有一些病例报道,较早统计其发病率在

新生儿人群为 1.9/10 万^[3]。近些年随着医学技术的发展使得早产儿存活率提高,病例数呈逐年递增的趋势^[4-5]。国内外文献报道的声门下囊肿婴幼儿大多数具有共同的特点:气管插管史和早产史^[6-9]。声门下囊肿的病因目前并不十分清楚,目前临床假说认为:声门下囊肿的发生机制为重复插管或抽吸造成声门下黏膜损伤,修复过程中上皮下肉芽组织增生,瘢痕形成,声门下黏膜腺管的堵塞而引起囊液堆积^[9-11],本组病例病理显示,囊壁

由少量纤维组织构成,内衬柱状上皮,一侧表面被覆复层鳞状上皮,诊断为喉囊肿,进一步验证了这一观点。婴儿的声门下比成人有更多的黏液腺,进一步使该人群容易发生声门下囊肿^[12],但具体发病机制还有待系统性的研究,并且新生儿是否存在原发性囊肿还有待进一步研究与探讨。囊肿多发部位为左侧^[5,9],这些发现似乎与医源性假说一致,因为临床医生惯用手大部分为右手,所以插管操作会导致左侧具有较高的黏膜创伤风险。在性别分布上,声门下囊肿男性患儿较女性更常见^[6,8,12-14],这可能是由于男性婴儿早产率高所致^[15]。

声门下囊肿的首要症状为喉喘鸣^[6,8,13],由于该疾病发病人群大部分为早产儿,可能会误诊为其他先天性疾病,如先天性支气管肺发育不良、气管软化、喉软化等^[4],国外还有误诊为哮喘病例报道^[13]。该研究中有病例首诊被误诊为单纯喉软骨发育不良。因此有明显气道阻塞症状的儿童,无论有无插管史,都应接受电子喉镜检查或者支气管镜检查^[16]。鉴别诊断主要为婴幼儿声门下血管瘤,该病左侧好发,临床表现常见为喉喘鸣,可引起声门下狭窄、气道阻塞、呼吸窘迫甚至死亡。其症状和声门下囊肿极为相似,增强 CT 检查可很好地区分两种疾病,声门下囊肿增强 CT 可见轻度环形强化,声门下血管瘤增强扫描强化明显^[17],彩色多普勒血流显像(color Doppler flow imaging, CDFI)技术也可区分两种疾病^[18],因此将减少临床上的误诊。

声门下狭窄是声门下囊肿的常见合并症状,Bowles 等^[8] 研究报道有 47% 的患儿合并声门下狭窄,其中 16% 需要进行气道重建手术,且围产期插管发生率极高(99%)。因为声门下狭窄是新生儿插管的一个常见的并发症,这些可能解释了声门下囊肿高比例并发声门下狭窄的原因。在声门下囊肿治疗后,并发声门下狭窄的患者进一步干预的可能性较小,声门下囊肿手术治疗后,症状即可得到充分的改善。

声门下囊肿的治疗,对于无症状的声门下囊肿患者进行临床随访观察,对于有症状的进行手术治疗。对于手术方法,当前文献报道较多的方法是内镜下冷器械的囊肿开窗造袋术^[8,19]。这可能和这种方法允许在手术过程中切除囊肿衬里有关^[9],以及使用冷器械很大程度上降低了侧支组织热损伤的风险和潜在的医源性狭窄^[8]。但是与 CO₂ 激光治疗方式在复发率上没有差异,都具有较高的复发率^[8]。复发率较高可能是因为大部分患者以多个囊肿形式存在,但较小的囊肿并未被发现,复发部位的不同更好地验证了这个观点^[14,19]。本研究的手术方式为先行冷器械手术囊壁开窗,在使用低温等离子以“凝”的模式烧灼囊壁,既减少副损伤,又可破坏囊壁,大大降低了复发率。对本研究中的患者随访至今,均未复发。

婴幼儿声门下囊肿是一种较为罕见、风险性高的上呼吸道疾病,对于有早产和围产期插管史的婴幼儿,需考虑声门下囊肿可能,应尽早行电子鼻咽喉镜检查。如果电子喉镜下发现声门下区肿物,可结合增强 CT 确诊疾病,治疗方法是在全身麻醉支撑喉镜下进行手术切除,术后需长期随访与治疗。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

- [1] 刘薇,张杰,唐力行. 儿童声门下区肿物诊治方法的探讨[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2015, 29(3): 252-254.
- [2] Wigger HJ, Tang P. Fatal laryngeal obstruction by iatrogenic subglottic cyst[J]. J Pediatr. 1968, 72(6): 815-820.
- [3] Pak MW, Woo JK, van Hasselt CA. Congenital laryngeal cysts: current approach to management[J]. J Laryngol Otol, 1996, 110(9): 854-856.
- [4] Vo DN. Anesthesia for patients with subglottic cysts[J]. Clin Case Rep, 2016, 4(2): 209-211.
- [5] Halimi C, Nevoux J, Denoyelle F, et al. Acquired subglottic cysts: management and long term outcome[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2012, 76(4): 589-592.
- [6] 刘帅帅,王超,李娟,等. 声门下囊肿 5 例[J]. 中华实用儿科临床杂志, 2021, 36(2): 134-136.
- [7] 赵小娅,滕以书,李泽南,等. 超低出生体重儿继发声门下囊肿一例[J]. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2020, 55(10): 972-973.
- [8] Bowles PFD, Reading J, Albert D, et al. Subglottic cysts: The Great Ormond Street experience in 105 patients[J]. Eur Arch Otorhinolaryngol, 2021, 278(6): 2137-2141.
- [9] Soloperto D, Spinnato F, Di Gioia S, et al. Acquired subglottic cysts in children: A rare and challenging clinical entity. A systematic review[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2021, 140: 110523.
- [10] Gould SJ, Young M. Subglottic ulceration and healing following endotracheal intubation in the neonate: a morphometric study[J]. Ann Otol Rhinol Laryngol, 1992, 101(10): 815-820.
- [11] Hawkins DB. Pathogenesis of subglottic stenosis from endotracheal intubation[J]. Ann Otol Rhinol Laryngol, 1987, 96(1 Pt 1): 116-117.
- [12] Steehler MK, Groblewski JC, Milmoie GJ, et al. Management of subglottic cysts with Mitomycin-C-A case series and literature review[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2011, 75(3): 360-363.
- [13] Aksoy EA, Elsürer C, Serin GM, et al. Evaluation of pediatric subglottic cysts[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2012, 76(2): 240-243.
- [14] Richardson MA, Winford TW, Norris BK, et al. Management of pediatric subglottic cysts using the Bugbee fulgurating electrode[J]. JAMA Otolaryngol Head Neck Surg, 2014, 140(2): 164-168.

纤维性肿瘤(纤维瘤、肌纤维瘤)、平滑和骨骼肌肿瘤(平滑肌瘤、横纹肌瘤)、血管和淋巴管肿瘤(血管瘤、淋巴管瘤),以及神经和多潜能间充质瘤(畸胎瘤)。确诊依赖病理+免疫组织化学。在肿瘤发现的早期进行完整的外科手术切除是目前针对 IMT 治疗的首选,可避免肿瘤占位对毗邻脏器和结构破坏的功能影响。当患者无法耐受手术或病变部位的肿瘤无法彻底切除时,可选择手术的治疗手段,如皮质类固醇类药物、非甾体类抗炎药、放化疗等,但均为经验性治疗,目前尚无标准的治疗方案被提出并被广泛接受^[9]。机制学研究显示,约有 50% 的 IMT 患者存在细胞遗传易位,位于 2p23 位点的基因克隆性异常,导致 ALK 蛋白过量表达,故针对 ALK 阳性的患者可采用 ALK 抑制剂治疗,部分病例有治疗反应。IMT 的生物学行为可表现为良性,也可表现为侵袭性。病例的预后也存在高度的多样化,部分 IMT 可出现复发和远处转移,少数还可发生恶变^[10]。肺外 IMT 复发率为 20%~25%,转移率小于 5%,最常见转移部位是肺和脑,其次是肝和骨,转移最常发生于诊断后 1 年内,偶有发生于手术切除后 9 年的报道^[11-13]。因此,术后长期随访非常重要,一般建议是 10 年。手术后复发的 IMT 患者,可选择皮质类固醇激素和放疗等综合治疗。观察显示皮质类固醇激素用于治疗 IMT 也有一定的效果,特别是儿童患者。该病要求早发现、早手术,尽可能地清除病灶,该患儿接受微创手术治疗后,术创恢复良好。2 个月后随访身高体重增长正常,复查 MRI 示鼻道通畅,未见异常信号,颅脑未见异常,胸部 CT 未见异常,肺部、颅脑等部位未见转移灶,随访至今患儿仍无复发迹象。该病例的成功诊断和治疗,可为后继类似病例的治疗提供参考。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

[1] Surabhi VR, Chua S, Patel RP, et al. Inflammatory Myofibroblastic Tumors: Current Update[J]. Radiol Clin North Am, 2016, 54(3): 553-563.
 [2] Chauhan RS, Sodhi KS, Nada R, et al. Pediatric inflammatory myofibroblastic tumor of the trachea: Im-

aging spectrum and review of literature[J]. Lung India, 2018, 35(6): 516-519.
 [3] Panigrahi C, Shahin M, Nayak HK, et al. Gastric inflammatory myofibroblastic tumor in a young child-A case report and literature review[J]. Indian J Pathol Microbiol, 2023, 66(2): 428-430.
 [4] Sakurai H, Hasegawa T, Watanabe S, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the lung[J]. Eur J Cardiothorac Surg, 2004, 25: 155-159.
 [5] Agrons GA, Rosado-de-Christenson ML, Kirejczyk WM, et al. Pulmonary inflammatory pseudotumor: radiologic features[J]. Radiology, 1998, 206(2): 511-518.
 [6] Patankar T, Prasad S, Shenoy A, et al. Pulmonary inflammatory pseudotumour in children[J]. Australas Radiol, 2000, 44(3): 318-320.
 [7] Khatri A, Agrawal A, Sikachi RR, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the lung[J]. Adv Respir Med, 2018, 86(1): 27-35.
 [8] Ma L, Wang K, Liu WK, et al. Is radical surgery necessary to head and neck inflammatory myofibroblastic tumor (IMT) in children? [J]. Childs Nerv Syst, 2009, 25(3): 285-291.
 [9] Karimi M, Tizmaghz A, Shabestanipour G. An interesting case of inflammatory myofibroblastic tumor presenting as cholangiocarcinoma[J]. Int J Surg Case Rep, 2018, 47: 38-40.
 [10] Dermarkarian CR, Patel KR, Fuller MY, et al. Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Orbit in an 8-Month Old [J]. Ophthalmic Plast Reconstr Surg, 2020, 36(3): e65-e68.
 [11] 吴冠华. 鼻腔鼻窦炎症性肌纤维母细胞瘤临床病理及影像学分析[J]. 影像研究与医学应用, 2021, 5(3): 147-148.
 [12] 刘娟, 朱佳, 王娟, 等. 儿童和青少年炎症性肌纤维母细胞瘤临床病理特征及生存分析[J]. 中国小儿血液与肿瘤杂志, 2022, 27(1): 31-35.
 [13] 赵珂, 张家齐, 饶可, 等. 肺部炎症性肌纤维母细胞瘤的诊疗: 单中心回顾性研究并文献综述[J]. 中华胸心血管外科杂志, 2022, 38(6): 380-384.

(收稿日期: 2023-08-16)

(上接第 988 页)

[15] Watson GJ, Malik TH, Khan NA, et al. Acquired paediatric subglottic cysts: a series from Manchester[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2007, 71(4): 533-538.
 [16] Zawadzka-Glos L, Frackiewicz M, Brzewski M, et al. Difficulties in diagnosis of laryngeal cysts in children [J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2009, 73(12): 1729-1731.
 [17] 陈伟, 陈佳瑞, 陈淑梅, 等. 普萘洛尔治疗婴幼儿声门下血管瘤的疗效分析[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂

志, 2022, 36(1): 55-58.
 [18] 孙晓卫, 刘小芳, 房玉辉, 等. 彩色多普勒血流显像技术在婴幼儿先天性声门下血管瘤中的应用[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2021, 35(4): 321-324.
 [19] Lim J, Hellier W, Harcourt J, et al. Subglottic cysts: the Great Ormond Street experience[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2003, 67(5): 461-465.

(收稿日期: 2023-08-16)