

• 经验交流 •

婴幼儿上气道良性占位 141 例临床分析

温鑫¹ 黄爱萍¹ 张爱英¹ 许敏¹ 宋英鸾¹ 崔莉¹ 耿江桥¹ 史静²

[摘要] 目的:分析和总结婴幼儿上气道良性占位的临床特点、诊断、治疗及预后。方法:回顾性分析 2012 年 1 月—2022 年 1 月我院诊治的 141 例上气道良性占位患儿的临床资料。其中男 85 例,女 56 例;年龄 0~3 岁,其中新生儿 24 例。对其临床特点、辅助检查、治疗结果进行总结和分析。结果:141 例患儿主要临床表现为呼吸困难和(或)喉喘鸣,其中先天性舌根囊肿 116 例,毛息肉 15 例,鼻咽部第二鳃裂囊肿 4 例,先天性喉小囊囊肿 2 例,咽部支气管源性囊肿 2 例,鼻咽部畸胎瘤 1 例,肌纤维瘤 1 例。所有患儿都完成相应检查和治疗,诊断明确,无漏诊或误诊,其中 19 例舌根囊肿患儿行囊肿穿刺术,术后随访 2 例先天性舌根囊肿患者,因其术后半年复发故行二次手术,其他患儿预后良好。结论:婴幼儿上气道良性占位,以囊性肿物多见,内镜辅助下低温等离子切除病变为主要治疗方式,对于呼吸困难严重且生命危急的患儿及时的穿刺治疗也是一种安全有效的治疗方法。

[关键词] 上气道肿物;呼吸困难;婴幼儿;低温等离子

DOI:10.13201/j.issn.2096-7993.2024.04.014

[中图分类号] R739.65 **[文献标志码]** B

Analysis of 141 cases with benign upper airway occupying in infant

WEN Xin¹ HUANG Aiping¹ ZHANG Aiyang¹ XU Min¹ SONG Yingluan¹
CUI Li¹ GENG Jiangqiao¹ SHI Jing²

¹Department of Otolaryngology, Hebei Children's Hospital, Shijiazhuang, 050031, China;

²Department of Anesthesiology, Hebei Children's Hospital)

Corresponding author: SHI Jing, E-mail:453602478@qq.com

Abstract Objective: To analyze and summarize the clinical characteristics, diagnosis, treatment and prognosis of benign upper airway space occupancy in infants. **Methods:** The clinical data of 141 cases with benign upper airway space from January 2012 to January 2022 were analyzed. Among them, 101 were male and 40 were female, the age is 0-3 years old. In which there were 24 newborns. The clinical characteristics, auxiliary examination and treatment results were summarized and analyzed. **Results:** The main clinical manifestations of 141 infants were dyspnea and/or laryngeal wheezing, including 116 cases of congenital cyst of tongue, 15 cases of hair polyps, 4 cases of nasopharyngeal second pharyngeal fissure cysts, 2 cases of congenital laryngeal cysts, 2 cases of pharyngeal bronchial cyst, 1 case of nasopharyngeal teratoma and 1 case of myofibroma. All the infants had completed the corresponding examination and treatment. The diagnosis was clear, and there was no missed diagnosis or misdiagnosis. Among them, 19 infants with congenital cyst of tongue were given cyst puncture to relieve dyspnea. 2 cases of congenital cyst of tongue recurred half a year after operation, and then they underwent reoperation. The prognosis of the remaining infants were good. **Conclusion:** The most common occupying of benign upper airway space occupancy is cyst, and low-temperature plasma resection under endoscope is the main treatment method. Timely puncture therapy is also a safe and effective treatment for infants who are dyspnea and life threatening.

Key words upper airway mass; dyspnea; infants; low-temperature plasma

婴幼儿上气道占位堵塞上气道,表现为上气道梗阻,严重者呼吸困难甚至出现窒息。及时诊断治疗可解除患儿气道堵塞,对患儿康复起到至关重要作用。婴幼儿上气道占位病例并不常见,以往对该病只有单一报道,本文回顾总结我院收治的 141 例

婴幼儿上气道良性占位病例资料,现报告如下。

1 资料与方法

1.1 临床资料

2012 年 1 月—2022 年 1 月我院收治了 141 例婴幼儿上气道良性占位病例,其中男 85 例,女 56 例,年龄 0~3 岁;新生儿 24 例。141 例患儿上气道占位临床资料,见表 1、图 1~15。

¹河北省儿童医院耳鼻咽喉科(石家庄,050031)

²河北省儿童医院麻醉科

通信作者:史静,E-mail:453602478@qq.com

表 1 141 例患儿上气道占位临床资料

疾病类型	例数	性别/例		年龄 (中位数)	主要症状	部位	鼻咽喉镜	B超	CT或MRI
		男	女						
先天性舌根囊肿	116	77	39	1 d~3 岁 (58 d)	喉喘鸣,少数呼吸困难	舌根部	舌根部半圆形隆起肿物,表面多数伴有血管走行(图 1、2)	舌根部边界清楚囊肿	舌根部类圆形低密度影(图 9)
毛息肉	15	5	10	1 d~3 岁 (1.5 m)	呼吸困难	软腭背侧 4 例,软腭与鼻咽侧壁交界处 4 例,硬腭 1 例,圆枕 3 例,鼻前庭 2 例,食道入口 1 例	灰白色或红色肿物,部分表面可见毛发样结构(图 3)		由脂肪及纤维组织成分为主的边界清楚的实性肿物(图 10)
畸胎瘤	1	0	1	20 h	呼吸困难	右侧咽鼓管附近	鼻咽-口咽部表面光滑肿物(图 4)		鼻咽-口咽腔团状软组织影,边界不清,其内可见多发片状低密度区,并可见点状高密度影(图 11)
鼻咽部第二鳃裂囊肿	4	2	2	出生~3 岁	检查发现,打鼾	鼻咽侧壁,左侧 2 例,右侧 2 例	鼻咽部隆起光滑肿物(图 5)	鼻咽部边界清楚囊性肿物	边界清楚,密度均一囊性肿物(图 12)
喉小囊囊肿	2	1	1	3 d,6 个月	呼吸困难,声音嘶哑	左侧喉部	喉室区,杓会厌皱襞区突起光滑肿物(图 6)	边界清楚囊性肿物	MRI 显示囊状长 T1、长 T2 液体信号影,其内信号较均匀,边界较清(图 13)
支气管源性囊肿	2	0	2	1.5 岁,3 岁	打鼾,体检发现	右侧鼻咽侧壁,右侧扁桃体后上方	表面光滑隆起肿物(图 7)	边界清楚囊性肿物	右侧咽旁可见一团块状软组织密度影,密度均匀(图 14)
咽喉部肌纤维瘤	1	0	1	3 岁	打鼾		咽喉部肿物球形肿物,表面可见走行细小血管(图 8)	下咽部实性低回声包块,边界清	喉部团块状软组织影,增强扫描病变不均匀强化,周围可见多发小血管影(图 15)

1.2 方法

通过检索住院系统资料,回顾分析患儿临床资料,包括临床表现、辅助检查、治疗及预后。患儿均经影像学或者病理学确诊,排除资料不完善的病例。

2 结果

临床表现为呼吸困难 38 例(6 例有气管插管史),喉喘鸣为主 98 例,打鼾为主 3 例,体检发现 2 例。19 例舌根囊肿患儿行囊肿穿刺术,124 例在全身麻醉下行低温等离子肿物切除术,其中 2 例为囊肿穿刺后复发患儿。2 例先天性舌根囊肿患儿术后半年复发二次手术。

3 讨论

婴幼儿上气道良性占位多数为先天性疾病,主要表现为上气道梗阻,部分严重者出现严重呼吸困难,甚至窒息。及时掌握婴幼儿上气道良性病变特点可以做到早诊断,早治疗,提高对该类疾病的诊治水平。

婴幼儿上气道良性占位以囊性肿物为主,发病率最高为先天性舌根囊肿。以往认为该病发病率低,比较少见^[1]。但是近几年由于就医模式改变,大量患者集中到儿童专科医院,国内报道文献较多。先天性舌根囊肿主要为先天性舌甲状舌管囊肿,少数考虑为黏液潴留囊肿。先天性舌甲状舌管囊肿形成是由于舌根部甲状舌管的残留导致^[2]。黏液潴留囊肿多数因炎症或机械因素使黏液腺管阻塞而致黏液潴留形成,具体病因仍不确定^[3-4]。病理学检查可见囊肿内壁衬以复层鳞状或柱状上皮细胞为主^[5]。先天性舌根囊肿临床表现以吸气性喉喘鸣为主,部分新生儿可表现为严重呼吸困难,甚至窒息。由于该病多数是在行电子喉镜检查时发现,所以电子喉镜在该病诊断中有重要的意义。电子喉镜下可以看到舌根部半球形隆起灰白色肿物,表面有时可见血管走行。颈部 B 超可以明确肿物性质,简单易行,同时可以除外异位甲状腺,

是诊断该疾病较好的检查手段^[6]。颈部 CT 及 MRI 对该病诊断也有明确提示^[7],但对于年幼患儿需要镇静,同时考虑到 CT 的辐射、MRI 的费用以及检查等待的时间,在对该病有充分认知的情况下不建议进行影像学检查^[8]。本研究中仅有 5 例年长婴幼儿进行了影像学检查。治疗目前以低温等离子囊肿切除术为主,可以选择支撑喉镜下显微镜或鼻内镜辅助下进行,也可以在可视麻醉喉镜下直接低温等离子切除,手术效果良好,术中应当注意尽可能充分暴露囊肿,将大部分囊壁切除即可,使囊腔敞开,彻底止血。没有必要将囊肿全部切除,那样创伤大,不仅增加了手术难度和手术时间,术后恢复时间也将延长。术后短期内复查选择电子喉镜检查了解伤口愈合情况,长期复查也可以选择颈部超声检查。本研究中有 2 例复发 2 次手术,复发原因考虑囊肿切除部分少,没有完全敞开有关。囊肿穿刺术被认为复发率高,目前文献多数不支持该治疗方式^[9]。本研究中有 6 例新生儿出生后出现严重呼吸困难并且插管困难,急诊麻醉喉镜下可见咽喉部巨大囊肿,使用 10 mL 注射器进行穿刺后送入 NICU,病情稳定后行电子喉镜检查,可见舌根部略偏向一侧囊皮,囊肿并没有复发(图 2)。此外有 13 例收入院患儿,其中 6 例有着明显呼吸困难,血氧饱和度降低,7 例合并其他疾病短期内不适合全身麻醉的患儿我们选择囊肿穿刺术。有 2 例新生儿穿刺 2 次,后期随访过程中有 2 例复发患者行低温等离子切除。对于呼吸困难严重或者全身麻醉风险较大患儿,囊肿穿刺术我们认为是缓解患儿呼吸困难一种快速、简单、安全有效、费用低廉的治疗方式。即便后期复发再次手术对患儿也赢得了一定恢复时间。

婴幼儿上气道良性占位中实体肿瘤主要多见于毛息肉。有学者认为毛息肉是一种起源于外胚层和中胚层的先天性肿瘤,且形成于早期胚胎发育过程中^[10-11]。另外,也有学者认为毛息肉是第二鳃弓发育畸形所致^[12]。病理学上毛息肉主要表现为:表面被覆鳞状上皮过度角化;内为纤维脂肪组织,常含软骨、平滑肌和骨组织,无内胚层来源组织^[13]。这一点也是和上气道畸胎瘤相鉴别的要点之一。畸胎瘤含有外、中、内胚层三层组织来源成分^[14]。对于体积较大的新生儿鼻咽部毛息肉主要表现为生后的呼吸困难,甚至窒息,需要气管插管来缓解呼吸困难。本研究中有 6 例新生儿出生后表现为严重呼吸困难,其中 3 例气管插管后送入我院。对于较大患儿临床表现同样为呼吸困难,部分喂养困难,多数患儿在常规体检时可以看到咽腔有腊肠样光滑肿物,吞咽活动时更明显。电子鼻咽喉镜检查可以看到鼻咽部光滑肿物,具体来源由于肿物遮挡多数情况下很难确定。影像学检查对毛息

肉诊断鉴别诊断有重要帮助,毛息肉在影像学上主要表现为边界清楚以脂肪组织及纤维组织为主的息肉样肿物。毛息肉多数有蒂,在鼻内镜辅助下低温等离子切除上气道毛息肉成为目前主要治疗方式。毛息肉切除对于蒂部处理为了不损伤周围正常重要结构,可以适当残留部分组织,只要解除呼吸道梗阻即可,复发病例罕见。

鼻咽部第二鳃裂囊肿极其少见,好发于亚洲人群^[15],Verma 等^[16]文献复习仅检索到 22 例关于该病的报道。根据鼻咽部鳃裂囊肿多数位于扁桃体腭咽弓后上方与咽鼓管咽口连线附近,推测这些囊肿来源于第二鳃裂囊肿^[15],根据 Proctor^[17]分类将它们归为 IV 型囊肿。病理学囊壁可见复层或假复层纤毛柱状上皮,柱状上皮,鳞状上皮,上皮下有淋巴组织^[16]。婴幼儿临床表现为打鼾,喉鸣为主^[18-19]。颈部 B 超在该病中并没有特异性表现,主要表现为边界清晰囊性改变,但由于其简捷无创可以作为婴幼儿首选检查。CT 一般显示边界清楚密度均一囊状肿物影,邻近软组织及局部骨质受压情况。在 MRI 上鳃裂囊肿通常在 T1 加权图像上显示低信号,而在 T2 加权图像上显示高信号而没有边缘增强^[20]。鼻内镜辅助下低温等离子切除囊肿为首选治疗方式。本组有 1 例患儿在胎儿期行超声检查时发现咽部巨大囊肿,出生后窒息,经气管插管后在全身麻醉下行低温等离子囊肿切除术。通过此例患儿我们检索到其他 3 例患儿的住院资料,发现也符合该疾病诊断。认为该病实际发病率远远高于文献报道,临床工作中由于并未仔细追溯该病发生机制,故将此病作为普通囊肿治疗,恐有遗漏,应引起临床上的高度重视。

先天性喉小囊囊肿临床罕见,由于先天发育不良,喉小囊囊口堵塞,因此囊内产生的液体不能引流至外界形成囊肿。多在婴儿期出现上气道梗阻表现^[21]。DeSanto 等^[22]将先天性喉小囊囊肿分为两类,囊肿生长在真假声带之间,阻塞喉腔为喉前型囊肿。囊肿生长在侧后方,可使室带或杓会厌皱襞扩张为喉侧型囊肿。该病诊断主要依赖于电子喉镜检查,在喉室处或者杓会厌皱襞处可以看到隆起肿物。影像学检查可以明确肿物的大小、范围、性质及位置毗邻关系。治疗以手术切除为主,囊肿穿刺术可以作为插管困难避免气管切开的紧急情况下使用,囊肿复发率高。本研究中有 2 例患儿,其中 1 例为出生后呼吸困难,插管困难,在电子喉镜辅助下气管插管成功;另 1 例 6 个月患儿表现为声音嘶哑,2 例患儿均在全身麻醉支撑喉镜下低温等离子切除大部分囊壁得以治愈。陆颖鑫等^[21]在内镜下 CO₂ 激光完整切除囊肿,可吸收缝线封闭术,取得良好效果。但完整切除囊壁,不损伤周围结构对术者技术要求很高,有很大难度。支气管源

性囊肿是一种先天性疾病,是呼吸系统在胚胎时期发育异常所致^[23]。发生于咽部支气管源性囊肿临床少见。本组 2 例患儿均行低温等离子囊肿切除术,术后病理得以确诊。肌纤维瘤是一种罕见的婴幼儿良性肿瘤。检索中文文献未见有关于发生于咽喉部的婴幼儿病例报道。肌纤维瘤是一种隐性常染色体疾病,病因不明,其发病与创伤、激素和遗传因素等有关^[24]。文献报道肌纤维瘤的发病与 *PDGFRB* 和 *NOTCH3* 基因突变有关^[25-26]。本

病多发生于头颈部、躯干和四肢的皮肤或皮下组织。CT/MRI 多表现为混杂密度/信号肿块,且以稍低密度/T2 高信号为主,增强后病灶呈不均匀强化,外周强化明显的特点^[25,27]。肌纤维瘤病理组织学形态分为 4 种:平滑肌瘤样或束状型、梭形细胞或结节型、血管外皮细胞瘤或血管球(血管)型、双相型或多结节型^[28]。治疗以手术切除为主。该病有局部侵袭性,手术应尽可能完整切除^[29]。

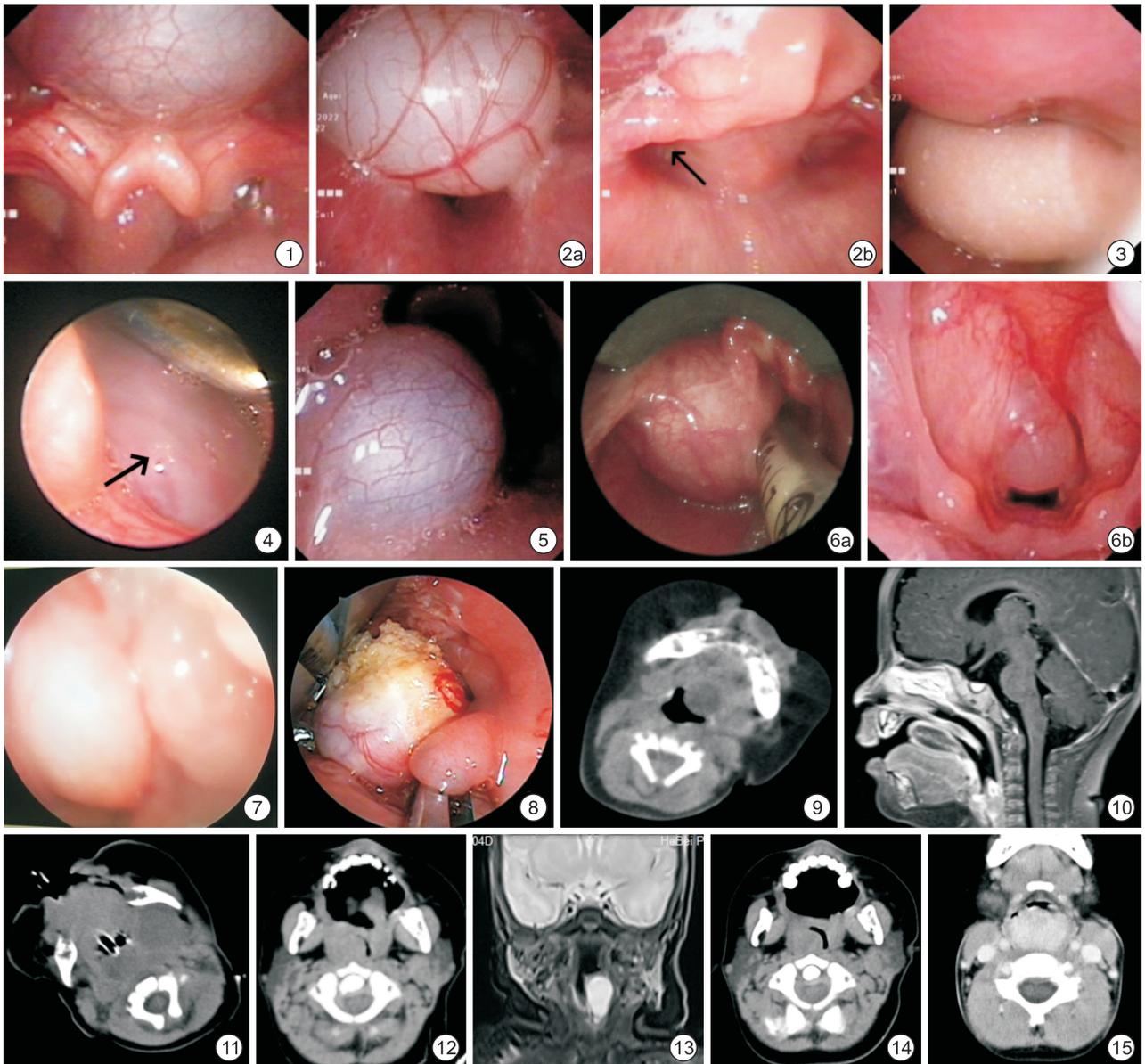


图 1 舌甲状舌管囊肿 舌根部正中囊肿; 图 2 先天性黏液潴留囊肿 2a:舌根囊肿体积大,堵塞气道严重;2b:囊肿穿刺后残留囊壁位于舌根偏左侧; 图 3 毛息肉 源于右侧圆枕附近鼻咽部肿物; 图 4 畸胎瘤鼻咽部体积巨大肿物; 图 5 鼻咽部第二鳃裂囊肿 左侧鼻咽部扁桃体后方囊肿; 图 6 先天性喉小囊囊肿 6a:左侧杓会厌皱襞隆起肿物(喉侧型);6b:左侧喉室区肿物(喉前型); 图 7 支气管源性囊肿 右侧扁桃体后上方肿物; 图 8 炎性肌纤维瘤来源于右侧咽喉部的球形肿物; 图 9 舌根囊肿; 图 10 毛息肉; 图 11 畸胎瘤; 图 12 鼻咽部第二鳃裂囊肿; 图 13 喉小囊囊肿; 图 14 支气管源性囊肿; 图 15 咽喉部肌纤维瘤

综上所述,婴幼儿上气道良性占位以囊性肿物为主,实性肿物少见,呼吸道梗阻为主要表现,紧急

情况下囊肿穿刺或气管插管可缓解症状。电子鼻咽喉镜检查对该类疾病诊断具有重要作用。低温

等离子切除病变为主要治疗方式。熟练掌握各种病变特点,可提高患儿救治成功率。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

- [1] Weldon BC, Krafcik JM. Breath-holding-like spells in an infant; an unusual presentation of lingual thyroglossal duct cyst[J]. *J Pediatr Surg*, 2000, 35(9): 1381-1384.
- [2] Mondin V, Ferlito A, Muzzi E, et al. Thyroglossal duct cyst: personal experience and literature review[J]. *Auris Nasus Larynx*, 2008, 35(1): 11-25.
- [3] 郑燕青, 林少蓉, 林海鹏, 等. 显微支撑喉镜下低温等离子射频消融术治疗新生儿舌根囊肿疗效观察[J]. *中国耳鼻咽喉颅底外科杂志*, 2017, 23(6): 577-579.
- [4] 赵利敏, 倪坤, 吴佳丽, 等. 低温等离子射频消融术在婴幼儿舌根囊肿的应用[J]. *中国眼耳鼻喉科杂志*, 2015, 15(2): 112-114, 118.
- [5] Sameer KS, Mohanty S, Correa MM, et al. Lingual thyroglossal duct cysts--a review[J]. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2012, 76(2): 165-168.
- [6] 陈超. 婴幼儿喉气道结构异常评估的专家共识[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2023, 37(6): 403-408.
- [7] 窦倩雯, 田秀芬. 舌根部甲状舌管囊肿的诊断与治疗经验[J]. *中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2020, 55(7): 683-686.
- [8] 王桂香, 张杰, 赵靖, 等. 婴幼儿舌根囊肿的诊断及围手术期治疗要点[J]. *山东大学耳鼻喉眼学报*, 2015, 29(3): 62-64.
- [9] 程波, 张志茂, 裴智, 等. 低温等离子射频消融系统在舌根囊肿切除术中的应用效果评价[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2015, 29(6): 561-563.
- [10] 滕以书, 冼志雄, 韩赛红, 等. 婴幼儿咽部毛状息肉五例[J]. *中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2017, 52(7): 534-535.
- [11] Kiroglu AF, Kutluhan A, Bayram I, et al. Reconstruction of a congenital midpalatal hairy polyp[J]. *Br J Oral Maxillofac Surg*, 2004, 42(1): 72-74.
- [12] Burns BV, Axon PR, Pahade A. 'Hairy polyp' of the pharynx in association with an ipsilateral branchial sinus: evidence that the 'hairy polyp' is a second branchial arch malformation[J]. *J Laryngol Otol*, 2001, 115(2): 145-148.
- [13] 黄爱萍, 张海中, 崔莉, 等. 婴儿毛息肉 13 例临床特征及诊治分析[J]. *中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2020, 55(9): 850-854.
- [14] Cay A, Bektas D, Imamoglu M, et al. Oral teratoma; a case report and literature review[J]. *Pediatr Surg Int*, 2004, 20(4): 304-308.
- [15] Chen YA, Su JL, Hao SP. Nasopharyngeal branchial cleft cyst[J]. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2007, 136(1): 144-146.
- [16] Verma A, Sohail MA, al-Khabori M, et al. Nasopharyngeal cyst of branchiogenic origin: report of a case and review of the literature[J]. *Ear Nose Throat J*, 2000, 79(9): 722-724, 726, 730-731.
- [17] Proctor B. Lateral vestigial cysts and fistulas of the neck[J]. *Laryngoscope*, 1955, 65(6): 355-401.
- [18] 陈勇超, 贾得声, 王一萍, 等. 以睡眠打鼾为首发症状的第二鳃裂囊肿 1 例[J]. *中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2022, 57(1): 51-53.
- [19] Gill SJ, Bhanu B. NASOPHARYNGEAL BRANCHIAL CYST CAUSING STRIDOR IN NEONATE: A CASE REPORT[J]. *Journal of Evolution of Medical and Dental Sciences*, 2014, 3(21): 5820-5824.
- [20] Shidara K, Uruma T, Yasuoka Y, et al. Two cases of nasopharyngeal branchial cyst[J]. *J Laryngol Otol*, 1993, 107(5): 453-455.
- [21] 陆颖鑫, 肖洋, 马丽晶, 等. 先天性喉小囊囊肿的临床特点及手术方式选择[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2016, 30(20): 1612-1614, 1619.
- [22] DeSanto LW, Devine KD, Weiland LH. Cysts of the larynx--classification[J]. *Laryngoscope*, 1970, 80(1): 145-176.
- [23] 潘中静, 邱子隽, 吕丹, 等. 误诊为神经鞘瘤的纵隔支气管囊肿 1 例[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2022, 36(11): 872-874.
- [24] 任立志, 孙睿. 左侧下颌骨婴幼儿肌纤维瘤病 1 例[J]. *华西口腔医学杂志*, 2020, 38(5): 594-597.
- [25] Lee JW. Mutations in PDGFRB and NOTCH3 are the first genetic causes identified for autosomal dominant infantile myofibromatosis[J]. *Clin Genet*, 2013, 84(4): 340-341.
- [26] Martignetti JA, Tian LF, Li D, et al. Mutations in PDGFRB cause autosomal-dominant infantile myofibromatosis[J]. *Am J Hum Genet*, 2013, 92(6): 1001-1007.
- [27] 庄霞梅, 金科, 李君伟, 等. 婴幼儿肌纤维瘤(病)影像学及临床表现[J]. *中国医学影像技术*, 2022, 38(4): 579-583.
- [28] Requena L, Kutzner H, Hügel H, et al. Cutaneous adult myofibroma: a vascular neoplasm[J]. *J Cutan Pathol*, 1996, 23(5): 445-457.
- [29] Maby A, Guay B, Thuot F. Infantile myofibromatosis treated by mandibulectomy and staged reconstruction with submental flap and free fibula flap: a case report[J]. *J Otolaryngol Head Neck Surg*, 2019, 48(1): 14.

(收稿日期: 2023-06-01)