

· 临床研究 ·

成人颈部支气管囊肿的诊治分析

盛颖, 梁建民, 罗花南, 任晓勇, 李阳*

西安交通大学第二附属医院耳鼻咽喉头颈外科病院, 陕西 西安 710004

[摘要] 目的:探讨成人颈部支气管囊肿的临床特征及诊疗方法。方法:1995年1月—2017年12月本院手术并病理确诊的11例成人颈部支气管囊肿,回顾性分析其临床表现及诊疗过程。结果:11例颈部支气管囊肿患者中,男5例,女6例,中位年龄(38.5±13.7)岁。2例位于颈前正中,2例位于上颈侧舌骨水平,7例位于下颈侧,其中6例位于甲状腺及气管旁,1例位于锁骨上区;7例患者有吞咽困难、呼吸困难、乏力、晕厥和颈部不适感等症状,余4例无自觉症状。所有病例CT影像均表现为低密度肿物,其中5例MRI影像中T₁WI、T₂WI加权均表现为中高信号。11例均行手术完整切除,1例出现短暂声嘶。术后平均随访36.8个月,未见复发。结论:成人颈部支气管囊肿临床罕见,容易误诊。其好发于甲状腺及气管旁区,MRI有助于提高诊断率。

[关键词] 颈部;成人;囊肿;支气管疾病

[中图分类号] R734.1

[文献标志码] B

[文章编号] 1007-4368(2020)02-263-03

doi: 10.7655/NYDXBNS20200223

支气管囊肿是一种胚胎时期气管、支气管树或肺芽发育异常所致的先天性支气管囊性变,属先天性少见疾病,好发生于纵隔和肺内。发生在颈部的支气管囊肿罕见,多发于儿童,仅极少数的病例报道发生于成人^[1]。小儿颈部支气管囊肿通常没有症状,男性发病率是女性3倍以上,位于胸骨上沿中线上靠近肺的位置生长^[2]。而成人颈部支气管囊肿的典型临床特征尚不明确,常被误诊为甲状舌管囊肿、鳃裂囊肿、甲状腺肿瘤等颈部其他病变,难以做到准确诊治^[3]。本研究回顾分析了本院11例成人颈部支气管囊肿的临床表现、组织病理学的特征及诊治经过,现报告如下。

1 对象和方法

1.1 对象

选择1995年1月—2017年12月在西安交通大学第二附属医院住院手术的成人颈部支气管囊肿患者。纳入标准:①年龄≥18岁;②发病部位在颈部;③术后病理检查确诊为支气管囊肿,即囊壁存在软骨,黏膜下腺体和平滑肌以及呼吸型上皮组织。

1.2 方法

搜索西安交通大学第二附属医院病理数据库,共检索到188例支气管囊肿,发生在颈部的成人

14例。3例(1.6%)虽病理上诊断为是支气管囊肿,但囊壁不含有软骨成分,予以排除。共计纳入11例(5.9%),其中,男5例,女6例,中位年龄38.5岁(18~59)岁。分析其临床特征及诊治经过,包括肿物位置、临床症状、超声、CT、MRI的影像结果、术前诊断、病理检查和随访时间。本研究获得西安交通大学医学院伦理委员会的批准。

2 结果

2.1 发病部位及临床表现

所有患者均可在颈部触及肿块(图1A)。肿块位于上颈部4例(36.3%),2例位于颈前正中,2例位于颈侧舌骨水平。肿块位于下颈部7例(63.7%),6例位于甲状腺及气管旁区,1例位于锁骨上区。

11例患者中,无自觉症状4例(36.3%),吞咽困难3例(27.3%),呼吸困难3例(27.3%),颈部不适2例(18.2%),乏力及突然晕厥1例(9.1%)。

2.2 影像学检查

所有患者术前均行CT检查,提示均质、低密度肿物(图1B),最小1.0 cm×1.5 cm,最大7.0 cm×5.0 cm。其中6例行增强CT,示肿物无明显强化(图1C)。5例患者行MRI检查,表现为T₁WI、T₂WI均中高信号(图1D、E),无明显增强(图1F)。

2.3 术前误诊

11例患者术前均被误诊,误诊率100%。误诊

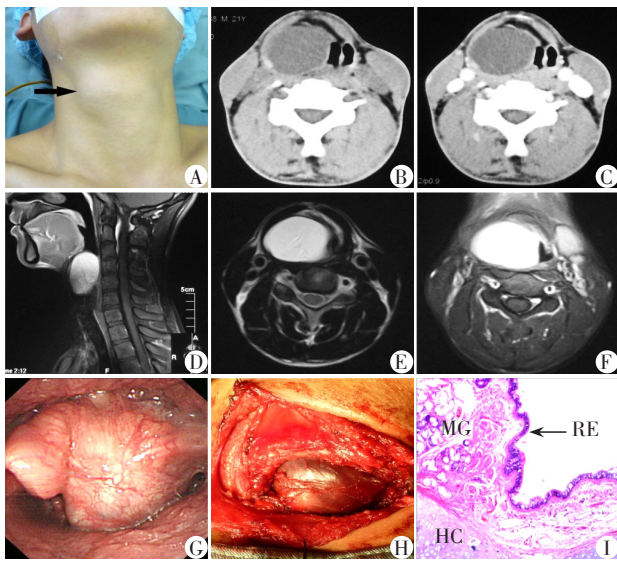
[基金项目] 陕西省基金社会发展领域(2018SF-050)

*通信作者(Corresponding author),E-mail:iamdawenxi@163.com

为甲状腺及甲状旁腺肿物3例(27.3%),甲状舌管囊肿2例(18.2%),喉癌淋巴结转移2例(18.2%),淋巴管瘤2例(18.2%),喉囊肿和鳃裂囊肿各1例(各9.1%)。

2.4 手术及随访

所有患者均行颈部探查手术并完整切除肿物(图1G),病理证实支气管囊肿,囊壁含有呼吸型上皮、黏液腺体、透明软骨(图1H)。术后随访12-136个月,中位随访时间36.8个月,无复发、无严重并发症。1例术后声音嘶哑,6个月后声音恢复正常。



A: 颈部可见隆起;B: 轴位CT;C: 增强CT;D: 矢状位MRI, T₁WI; E: 轴位MRI, T₁WI; F: 增强MRI; G: 喉镜检查; H: 术中照片; I: HE染色(RE: 呼吸上皮, MG: 黏液腺体, HC: 透明软骨, ×100)。

图1 成人颈部支气管囊肿的临床特点

3 讨论

支气管囊肿是原始前肠腹侧发育过程中出现的先天性畸形。妊娠22~33 d异常的支气管胚芽或原始支气管的组织细胞游走到其他部位并持续生长而形成^[4]。根据部位,支气管囊肿分为纵隔型、肺内型及异位型。异位型中发生于颈中部或颈侧罕见,其确切的机制尚不清楚。当胚芽与气管支气管树的连接完全消失时,气管的异常胚芽可能形成颈中线囊肿,支气管的异常胚芽可能形成颈侧囊肿。或由胸腔已经形成的支气管囊肿被挤压或迁移到颈部而形成。异位发生于腹部支气管囊肿和颈部支气管囊肿,占支气管囊肿的比例小于10%^[2]。其中儿童颈部支气管囊肿所占比例不足1%,多位于在胸骨上沿中线最靠近肺的区域。成人颈部支气管囊肿更加罕见,已报道病例数不超过80例^[2,5-9]。

其中超过80%的病例发生在甲状腺和气管旁区域,女性与男性的比例接近1:1,这与既往个案报道中儿童性别比3:1和成人性别比4:1不同^[2]。然而,在甲状腺及气管旁区域女性与男性比例超过2:1^[7]。本研究中6例发生在甲状腺及气管旁区域,其中5例为女性,提示女性此区域发生的肿物,应与支气管囊肿相鉴别。

颈部支气管囊肿通常无症状,常在行胸片检查时偶然发现,多数囊肿不大。在一项大宗的儿童颈部支气管囊肿报道中,囊肿的最大直径0.5~3.0 cm^[2]。多数成人颈部支气管囊肿体积较大,当压迫气管或周围结构时出现呼吸困难、咳嗽、吞咽困难和咽喉痛等症状。本研究中囊肿的最大直径1.5~7.0 cm,主要症状是吞咽困难和呼吸困难,只有4例无症状。其中典型病例3患者术前乏力和突然晕厥,心动过缓,可能是由于囊肿压迫迷走神经引起,切除囊肿后症状改善。此例因心脏症状而非呼吸症状为表现的成人支气管囊肿,国内外尚未见类似报道。

颈部支气管囊肿需要与鳃裂囊肿、甲状舌管囊肿、胸腺和甲状腺囊肿、喉囊肿、皮样囊肿、淋巴管瘤、囊性水瘤、畸胎瘤和囊性神经瘤等颈部囊性肿物相鉴别^[3]。术前超声、CT和MRI有助于支气管囊肿的鉴别诊断。超声常提示密封的充满液体的囊性肿物。CT表现为无增强的低密度肿物,当囊肿内液体密度较大时不能反映内容物的性质,但可明确囊肿的范围及与周围解剖结构的关系^[10]。MRI相比以上检查具有安全无创、软组织分辨率高、可重复性好、客观性强等优点^[11]。不需要使用造影剂即可显示囊肿形状、大小、内容物性质以及囊肿与气管之间的关系。支气管囊肿通常在T₂加权像上表现为等信号或高信号,但对发生在颈部的支气管囊肿的MRI特征缺少研究,在既往报道中仅个别成人颈部支气管囊肿进行了MRI检查。本研究中5例颈部支气管囊肿T₁WI、T₂WI均表现为中高信号,无增强,这可能与囊肿内容物为蛋白或血性分泌物有关。因儿童不使用镇静药物很难得到高质量的MRI影像,对儿童支气管囊肿多推荐CT检查,但对成人应该在术前完善MRI检查。

病理检查是诊断支气管源性囊肿的金标准。囊壁存在软骨,黏膜下腺体和平滑肌以及呼吸型上皮组织是其三大病理特征。诊断支气管囊肿的争议在于囊壁是否存在软骨成分,有学者认为软骨成分是继发于感染和鳞状上皮化生的结果,诊断时不

需要同时具备三大特征。也有学者认为存在软骨成分是支气管囊肿的特异性组织学表现。Teissier等^[2]认为具有呼吸型上皮和黏液腺而缺少软骨组织的囊肿,属于进化不全的囊肿而非支气管囊肿。本组患者均具有三大特征,即囊壁中含有呼吸型上皮组织、黏液腺和透明软骨。另有3例尽管在病理上被诊断为是支气管囊肿,但囊壁不含有软骨成分,予以排除。

因支气管囊肿有增大趋势并可引起多种症状,一经发现即使无症状也应手术切除。虽然经皮穿刺抽吸囊液操作简单并可以减轻压迫症状,但因无法去除囊壁及其中具有分泌功能的腺体及上皮组织,囊肿终将复发。颈部解剖结构复杂,富含神经及大血管,随囊肿增大,症状增多,手术风险也随之增加。颈部支气管囊肿还有恶变为黏液表皮样癌和恶性黑色素瘤的可能。因此,早期手术完整切除可以减少并发症并防止复发和恶变^[12]。颈部囊性肿物的鉴别诊断众多,没有组织病理学检查很难明确诊断,进一步说明手术完整切除的重要性。

本组患者全部误诊,应当引起临床医师重视。进一步分析误诊原因,总结如下:①该病临床少见,发生在成人尤其罕见,很多临床医师对此病认识不足。②该病发生位置不固定,可发生在颈中部和颈侧部,易被误诊为甲状舌管囊肿、鳃裂囊肿等发生部位相对固定的疾病。本研究中3例囊肿因与甲状腺比邻并随吞咽上下活动而被误诊为甲状腺囊肿。③该病症状不典型,囊肿小可无症状,囊肿增大可出现吞咽和呼吸困难、打鼾等症状。临床医师根据以上症状易首先考虑喉囊肿、甲状腺囊肿等阻塞和压迫气道的疾病。④常规检查如超声、CT缺乏特异性表现,使得其不易与颈部常见囊肿鉴别。⑤该病可合并头颈部肿瘤而被误诊为转移淋巴结。Jun等^[7]在18 900例甲状腺癌手术中发现18例颈部支气管囊肿,且均被误诊为转移淋巴结。本组2例支气管囊肿发生于喉癌患者,并被误诊为转移淋巴结行颈侧区淋巴清扫术。

综上所述,本研究对11例成人颈部支气管囊肿的临床表现、诊治经过进行回顾性分析,是目前该疾病的最大宗临床研究。该病临床罕见,容易误诊。其好发于甲状腺及气管旁区,需与甲状腺肿瘤及肿瘤转

移淋巴结相鉴别。MRI检查T₁WI和T₂WI具有中高信号,有助于提高颈部支气管囊肿诊断率。

[参考文献]

- [1] CILLERUELO R A, OVELAR A Y, GARCIA Y M. Cervical bronchogenic cyst in adults. Case report and literature review[J]. Arch Bronconeumol, 2015, 51(2):95-96
- [2] TEISSIER N, ELMALEH-BERGES M, FERKADJ L, et al. Cervical bronchogenic cysts: usual and unusual clinical presentations[J]. Arch Otolaryngol Head Neck Surg, 2008, 134(11):1165-1169
- [3] MATTINGLY J K, ARGANBRIGHT J M, LOVELL M A, et al. Cervical bronchogenic cysts: case report and review of the literature[J]. Am J Otolaryngol, 2014, 35(5):655-657
- [4] USTUNDAG E, ISERI M, KESKIN G, et al. Cervical bronchogenic cysts in head and neck region [J]. J Laryngol Otol, 2005, 119(6):419-423
- [5] CRESPO D H J, ESTEBAN A V, RUIZ G M, et al. Cervical bronchogenic cysts [J]. Acta Otorrinolaringol Esp, 2013, 64(5):379-381
- [6] ZAIMI R, FOURNEL L, CHAMBON E, et al. Double bronchogenic cyst[J]. Rev Mal Respir, 2014, 31(9):864-866
- [7] JUN H H, KIM S M, LEE S Y, et al. Cervical bronchogenic cysts mimic metastatic lymph nodes during thyroid cancer surgery [J]. Ann Surg Treat Res, 2014, 86(5):227-231
- [8] CILLERUELO R A, OVELAR A Y, GARCIA Y M. Cervical bronchogenic cyst in adults. Case report and literature review[J]. Arch Bronconeumol, 2015, 51(2):95-96
- [9] JIANG J H, YEN S L, LEE S Y, et al. Differences in the distribution and presentation of bronchogenic cysts between adults and children [J]. J Pediatr Surg, 2015, 50(3):399-401
- [10] KIRALJ A, VUCKOVIC N, MIJATOV I. Congenital cervical bronchogenic cyst: a case report [J]. Srp Arh Celok Lek, 2015, 143(5-6):317-321
- [11] 姜家锁, 苏国义, 胡昊, 等. 颌下腺MRI在干燥综合征诊断中的价值[J]. 南京医科大学学报(自然科学版), 2019, 39(3):422-424
- [12] KUN - DARBOIS J D, BREHERET R, BIZON A, et al. Bronchogenic cyst of the tip of the tongue: report of two cases [J]. Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis, 2015, 132(1):49-51

[收稿日期] 2019-05-13