

·病例报告·

外科治疗儿童非结核分枝杆菌性
颈淋巴结炎二例

全文二维码



开放科学码

李 会¹ 李 欣² Susan Penelope Cadzow² 范齐文³ 路光中⁴ 滕国良²

【中图分类号】 R726.326 R726.1

非结核分枝杆菌(nontuberculous mycobacteria, NTM)是指除了结核分枝杆菌复合群和麻风分枝杆菌以外的分枝杆菌,广泛存在于土壤、河流、工矿等自然环境以及人类生活环境之中。根据 NTM 侵犯部位的不同,分为 NTM 肺病、NTM 淋巴结病、NTM 皮肤病及播散性 NTM 病。国外有文献报道,儿童 NTM 颈部淋巴结炎占头颈部分枝杆菌性淋巴结炎的 95% 以上,但在我国报道较少^[1]。现回顾性分析上海嘉会国际医院 2020 年 4 月至 2020 年 6 月收治的 2 例儿童 NTM 颈部淋巴结炎患者的临床资料,总结该病诊治经验。

病例 1,男,29 个月,英国国籍,出生于英国,由英国来沪旅游。患者因右颈部碰撞树干后肿胀 2 周就诊,初起微痛,3 d 后疼痛自行好转,但肿胀仍然存在,病程中无发热、纳差、消瘦及盗汗等其他异常。查体发现右颈部淋巴结肿大,约 1.5 cm × 1 cm,无触痛,可推动,皮肤表面无异常。颈部 B 超提示淋巴结增大,血流丰富,直径约 2 cm(图 1A),考虑为反应性淋巴结增大。7 d 后复诊,查体提示右颈部局部肿胀面积增大,约 3 cm × 2 cm,皮肤表面呈暗红色,中央略软;复查 B 超提示右颈部颌下腺处脓肿形成,直径约 2.1 cm(图 1B)。详细询问病史,发现患者出生后未接种卡介苗(Bacille Calmette-Guérin, BCG)。结核分枝杆菌特异性细胞免疫反应(Quantiferon Gold In-Tube test, QFT)及其他常见病毒血清检查均提示阴性,胸片无异常。予穿刺,未见脓液,行淋巴结切除术,术中见数枚淋巴结肿大,遂切除肿大淋巴结,病理检查结果提示为肉芽肿样病变(图 2)。隔日换药,见伤口分泌物,多次涂片显示抗酸(acid-fast bacilli, AFB)染色阳性,3 周后颈部增强 CT 检查提示边缘强化、中央低信号脓肿,脂肪带少(图 3),提示伤口脓肿形成(图 4)。分泌物培养 6 周后长出菌落,后不再生长;返回英国当地医院就诊,于英国当地门诊继续换药 5 周后伤口愈合(图 5),随访 12 个月未见复发和新发病灶,无窦道形成。

病例 2,男,14 个月,法国国籍,出生于中国,一直生活在上海。因左颈部淋巴结肿大 2 d 就诊。查体发现左颈部淋巴结肿大,约 1 cm × 1.5 cm,质韧,无触痛;血常规、血沉、EB 病

毒及 QFT 检查均未见异常, B 超检查提示淋巴结反应性增大。予口服阿莫西林抗炎 2 周,淋巴结略变小。2 个月后患者左颈部淋巴结再次变大,并开始变红、变软,查体左颈部局部红肿,约 1 cm × 1 cm,呈紫罗兰色(图 6),无明显触痛。B 超检查提示颈部淋巴结液化。追问病史,患者出生后至今未行 BCG 接种。予细针穿刺脓肿部位,抽出少许黄色脓性液体,AFB 染色阳性,结合病例 1 的诊治经验,诊断为 NTM 颈部淋巴结炎,予淋巴结根治性切除术。术中沿液化的淋巴结周围完整切除,周围淋巴结无肿大,放置引流皮片。术后 24 h 拔除皮片,伤口换药、拆线,愈合良好,随访 10 个月,未见复发和新发病灶,无窦道形成(图 7)。病理检查提示肉芽肿性病变;分泌物培养 7 周后见菌落,后停止生长。

讨论 儿童 NTM 感染发病率为 0.8/10 万至 4.5/10 万,总体呈上升趋势。由于部分儿童 NTM 感染并无症状,且 NTM 不会出现交叉感染,所以大多数国家并不要求 NTM 登记上报^[2]。临床上根据细菌的生长速度将 NTM 分为快生长分枝杆菌(rapidly growing mycobacteria, RGM)和慢生长分枝杆菌(slowly growing mycobacteria, SGM),SGM 往往培养数周后才出现菌落^[3]。本组 2 例临床进展缓慢,脓液培养近 2 个月方见菌落,提示可能为 SGM。NTM 颈淋巴结炎大多数由病原菌进入咽部黏膜引起,其次是外伤引起^[4]。本组病例 1 有明确的颈部外伤史,考虑其发病可能与外伤有关。根据临床表现可将 NTM 颈淋巴结炎分为四期:Ⅰ期表现为颈部(下颌下区、腮腺区或耳前区)无痛性肿胀,无全身症状;Ⅱ期表现为局部淋巴结肿大,伴轻度压痛;Ⅲ期出现皮肤表面受累,皮肤呈粉红色至紫罗兰色;Ⅳ期表现为局部淋巴结液化,皮肤呈羊皮纸样变薄,后破溃,形成皮肤窦道^[5]。本组 2 例病初均表现为无痛性淋巴结肿大,病例 2 发病 8 周后皮肤由粉红色变成紫罗兰色,进入Ⅲ期。

由于 NTM 生长缓慢,培养条件苛刻,确诊具有极大的挑战性。临床上需与结核性颈淋巴结炎及细菌性急性化脓性颈淋巴结炎相鉴别。细菌性急性化脓性颈淋巴结炎表现为起病急、触痛,伴随发热等全身症状,且分泌物 AFB 染色阴性;而 NTM 颈淋巴结炎进展期可发生淋巴结液化,增强 CT 检查可提示边缘强信号、中央低信号的脓肿,有少量脂肪带。结核性颈淋巴结炎多数发生在年龄较大的儿童,可合并呼吸系统及全身症状;而 NTM 颈淋巴结炎多发生于婴幼儿,无肺

DOI:10.12260/lxewkzz.2021.10.020

作者单位:上海嘉会国际医院,1. 儿外科;2. 儿内科;3. 检验科;4. 病理科(上海市,200233)

通信作者:李会, Email:eric.li@jiahui.com

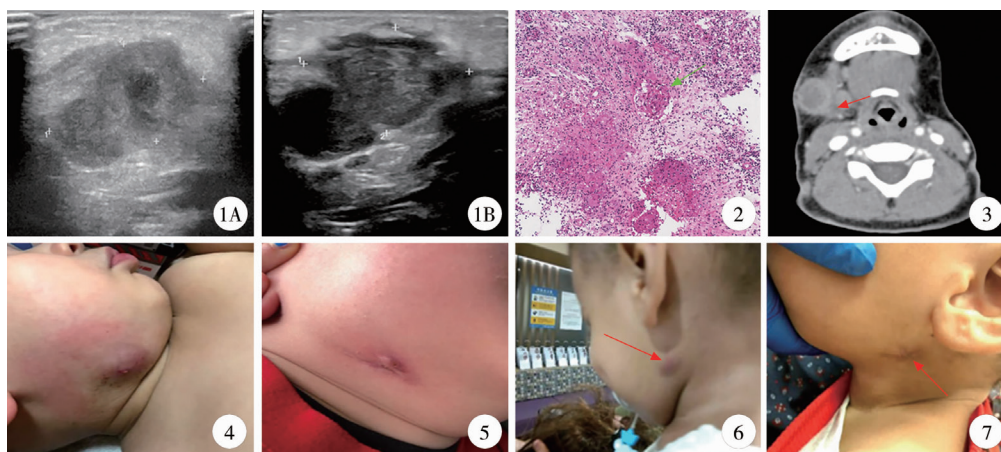


图 1 非结核分枝杆菌颈淋巴结炎患者(病例 1)颈部 B 超图 **注** A:发病 2 周后 B 超检查提示淋巴结肿大; B:发病 3 周后 B 超检查提示淋巴结肿大伴液化 **图 2** 结核分枝杆菌颈淋巴结炎患者(病例 1)淋巴结活检 HE 染色病理结果 **注** 肉芽肿形成(绿色箭头, HE 染色, $\times 100$) **图 3** 结核分枝杆菌颈淋巴结炎患者(病例 1)脓肿形成增强 CT 图 **注** 脓肿周边少量脂肪带(红色箭头) **图 4** 淋巴结活检后 3 周脓肿形成 **图 5** 伤口换药 8 周后愈合 **图 6** 发病 2 个月后皮肤表面呈紫罗兰色, 进入临床 III 期 **注** 皮肤呈紫罗兰色(红色箭头) **图 7** 淋巴结切除后第 10 个月随访照片 **注** 伤口愈合良好(红色箭头)

Fig. 1 Neck lymph node ultrasound of Case 1 **Fig. 2** Histopathology of neck lymph node in Case 1 (HE, $\times 100$) **Fig. 3** Neck abscess contrast CT scan of Case 1 **Fig. 4** Abscess formation at 3 weeks after neck lymph node biopsy of Case 1 **Fig. 5** Wound healed after an 8-week treatment of dress changing **Fig. 6** After an onset of 2 months, violaceous discoloration of overlying skin indicated stage III **Fig. 7** Wound healed well after lymphadenectomy

部及全身症状,颈部淋巴结所在皮肤呈紫罗兰色是其典型表现^[6]。结核菌素(purified protein derivation of tuberculin, PPD)皮肤试验中,如果皮肤硬结直径在 15 mm 以上,提示为 TB 感染;硬结直径在 5~9 mm,提示为 NTM;但由于该方法与卡介苗接种存在交叉反应,易出现假阳性,目前基本不用该方法诊断 TB 和 NTM^[7]。NTM 病理检查可见镜下表现与 TB 相似,为干酪样坏死、坏死性肉芽肿、纤维干酪样反应、多核巨细胞以及小脓肿,很难与结核感染相鉴别^[8]。QFT 是鉴别结核(tuberculosis, TB)与 NTM 的主要手段,是当前诊断 TB 特异度和灵敏度均较高的检验指标;70%~80% 的 TB 淋巴结炎 QFT 表现为阳性,而 NTM 的淋巴结炎表现为阴性^[6]。

NTM 的诊断需满足以下条件:①具有典型的临床表现和(或)特征性影像学表现;②除外其他具有类似临床表现的疾病;③诊断为其他疾病而临床治疗无效;④实验室检查证实为 NTM(除外标本污染),或两次不同时间段标本检测阳性;颈部 NTM 淋巴结炎在临床上根据慢性病程、单侧淋巴结肿大、皮肤呈紫罗兰色以及分泌物 AFB 染色阳性、病理检查见肉芽肿样病变并除外结核感染,可以做出诊断^[2,3]。本组 2 例病初均表现为无痛性淋巴结肿大,无法诊断;病例 1 伤口出现分泌物,涂片抗酸染色阳性,遂考虑诊断;病例 2 发病 3 周后皮肤由粉红色变成紫罗兰色,进入 III 期,结合穿刺脓液涂片抗酸染色阳性,考虑该病。

NTM 淋巴结炎的治疗方式有外科手术切除、期待疗法及抗感染治疗。对于 NTM 颈淋巴结炎的确诊或疑似病例,初始治疗方案为手术切除;绝大多数病例经淋巴结切除后可治愈,治愈率达 70%~100%^[5]。累及皮肤的 NTM 需连同皮肤一起完整切除;对于周围的反应性淋巴结增生或炎性组织,可予以保留,特别是周围有重要神经时;不建议切开引流

或部分切除,因为可能导致慢性窦道形成或复发^[9]。在抗感染治疗问题上,一方面 NTM 对大多数药物出现多药耐药,另一方面 74% 的患者会出现药物不良反应,故对 NTM 引起的颈淋巴结炎通常不首选抗感染治疗^[10]。对于不能完全切除或无法切除、有面神经等重要神经损伤风险的病例,可结合临床予以密切随访或药物治疗。

有调查研究发现,NTM 感染的发病率在部分实行卡介苗接种的瑞典,较普遍实行新生儿 BCG 接种的芬兰高出 30 倍;在捷克和瑞典,停止广泛性新生儿 BCG 接种后,儿童 NTM 感染率急剧上升,这提示新生儿时期接种 BCG 可能同时有利于预防 NTM 感染^[11]。也有研究发现,接种 BCG 后可以通过 Th1/Th2/Th7 及 IFN- γ 等细胞因子,参与 NTM 的免疫预防,这为医疗实践中,通过接种 BCG 来预防 NTM 病,提供了有力的依据^[12]。本组 2 例患者均未接种 BCG,但 NTM 感染是否与未接种 BCG 有关,还需要更多的证据支持。

在以往临床实践中,对未接种 BCG 疫苗的淋巴结肿大,通常考虑结核杆菌感染可能性大;但随着 NTM 的流行和检测率的增加,在排除结核性淋巴结炎时,需要考虑 NTM 性淋巴结炎;对于 NTM 颈淋巴结炎,不累及重要神经时,手术切除是首选治疗方案。

参考文献

- Mahadevan M, Neeff M, Van Der Meer G, et al. Non-tuberculous mycobacterial head and neck infections in children: A analysis of results and complications for various treatment modalities[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2016, 82: 102-106. DOI:10.1016/j.ijporl.2015.12.026.

- 2 Meoli A, Deolmi M, Iannarella R, et al. Non-tuberculous mycobacterial diseases in children [J]. *Pathogens*, 2020, 9 (7) : 553. DOI: 10. 3390/pathogens9070553.
- 3 中华医学会结核病学分会. 非结核分枝杆菌病诊断与治疗指南(2020 年版) [J]. *中华结核和呼吸杂志*, 2020, 11 : 918-946. DOI: 10. 3760/cma. j. cn112147-20200508-00570.
Chinese Society for Tuberculosis, Chinese Medical Association: Guideline for the Diagnosis and Treatment of Non-tuberculous Mycobacterioses (2020) [J]. *Chin J Tuberc Respir Dis*, 2020, 11 : 918-946. DOI: 10. 3760/cma. j. cn112147-20200508-00570.
- 4 Schoenfeld N, Haas W, Richter E, et al. Recommendations of the German Central Committee against Tuberculosis (DZK) and the German Respiratory Society (DGP) for the Diagnosis and Treatment of Non-tuberculous Mycobacterioses [J]. *Pneumologie*, 2016, 70 : 250-276. DOI: 10. 1055/s-0041-111494.
- 5 Torretta S, Gaffuri M, Ibba T, et al. Surgical treatment of non-tuberculous mycobacterial lymphadenitis in children: Our experience and a narrative review [J]. *Int J Immunopathol Pharmacol*, 2018, 32 : 2058738418806413. DOI: 10. 1177/2058738418806413.
- 6 Tebruegge M, Pantazidou A, MacGregor D, et al. Nontuberculous mycobacterial disease in children-epidemiology, diagnosis & management at a tertiary center [J]. *PLoS One*, 2016, 11 (1) : e0147513. DOI: 10. 1371/journal. pone. 0147513.
- 7 Zimmermann P, Curtis N, Tebruegge M. Nontuberculous mycobacterial disease in childhood-update on diagnostic approaches and treatment [J]. *J Infect*, 2017, 74 (Suppl 1) : S136-S142. DOI: 10. 1016/S0163-4453(17)30204-9.
- 8 穆晶, 刘子臣, 张晨, 等. 非结核分枝杆菌肺病的病理学特征及分子病理在其诊断中的价值 [J]. *中华病理学杂志*, 2020, 49 (6) : 562-567. DOI: 10. 3760/cma. j. cn112151-20191028-00669.
- 9 Willemse SH, Karssemakers LHE, Oomens MAEM, et al. Cervicofacial non-tuberculous mycobacterial lymphadenitis: clinical determinants of incomplete surgical removal [J]. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 2020, 49 (11) : 1392-1396. DOI: 10. 1016/j. ijom. 2020. 03. 019.
- 10 Scott CA, Atkinson SH, Sodha A, et al. Management of lymphadenitis due to non-tuberculous mycobacterial infection in children [J]. *Pediatr Surg Int*, 2012, 28 (5) : 461-466. DOI: 10. 1007/s00383-012-3068-8.
- 11 Zimmermann P, Finn A, Curtis N, et al. Does BCG vaccination protect against nontuberculous mycobacterial infection? a systematic review and meta-analysis [J]. *J Infect Dis*, 2018, 218 (5) : 679-687. DOI: 10. 1093/infdis/jiy207.
- 12 Abate G, Hamzabegovic F, Eickhoff CS, et al. BCG vaccination induces *M. avium* and *M. abscessus* cross-protective immunity [J]. *Front Immunol*, 2019, 10 : 234. DOI: 10. 3389/fimmu. 2019. 00234.

(收稿日期: 2020-02-22)

本文引用格式: 李会, 李欣, Susan Penelope Cadzow, 等. 外科治疗儿童非结核分枝杆菌性颈淋巴结炎二例 [J]. *临床小儿外科杂志*, 2021, 20 (10) : 998-1000. DOI: 10. 12260/lxewkzz. 2021. 10. 020.

Citing this article as: Li H, Li X, Susan PC, et al. Surgical treatment of non-tuberculous mycobacterial lymphadenitis in children: two case reports [J]. *临床小儿外科杂志*, 2021, 20 (10) : 998-1000. DOI: 10. 12260/lxewkzz. 2021. 10. 020.

关于对来稿推荐信及更改作者的要求

1. 来稿必须附第一作者单位的推荐信,并加盖公章,只在稿件上盖章无效。
 2. 介绍信的内容必须包括该稿作者姓名及文章全称,要求稿件内容真实;不涉及保密;无一稿两投;作者署名及顺序无争议。
 3. 在稿件处理期间,因故增减作者或必须更改作者署名顺序者,需由第一作者出具书面说明,变更前后所有作者签名,由原出具投稿推荐信的单位证明,并加盖公章。
- 另外,论文若属国家自然科学基金项目或军队、部、省级以上重点课题,请写出课题号,并附由推荐单位加盖公章的基金证书复印件。

本刊编辑部