

· 论著 ·

儿童梨状窝瘘 41 例

张立洪 吕志葆 肖现民

【摘要】 目的 提高对儿童梨状窝瘘的认识,介绍相关诊断与治疗进展。方法 报告 41 例梨状窝瘘病例,男 16 例,女 25 例,年龄 9 个月至 12 岁 3 个月;左侧 40 例,右侧 1 例;33 例行颈部超声显像,20 例行 CT 检查,29 例行甲状腺核素显像,39 例行食管吞钡造影。28 例手术治疗,其中 20 例应用胃镜辅助,并对 37 例进行随访,随访时间 18 个月至 17 年 6 个月。结果 超声检查显示:32 例病变侧甲状腺实质不均质占位或软组织实质不均质占位,与甲状腺关系密切;CT 检查提示:病变侧颈部炎性肿块或合并甲状腺内炎性占位性病变,其中 5 例直接诊断为梨状窝瘘;核素显像提示:26 例甲状腺左叶、特别是上极放射性稀疏,2 例呈“冷结节”;食管吞钡检查显示:左侧或右侧梨状窝底部有垂直下行的细小瘘管。10 例单纯切除术中 8 例治愈,2 例复发,经胃镜辅助治愈;20 例经胃镜辅助切除病例中,2 例复发;13 例未手术,其中 9 例获随访,5 例自愈或未发作,4 例仍反复发作。结论 儿童梨状窝瘘炎症消退后食道吞钡检查可明确诊断,CT、B 超及同位素检查在梨状窝瘘的诊断中也起着非常重要的作用,手术切除瘘管是主要的治疗方法,关键在于完整切除或消灭瘘管;胃镜辅助检查有助于瘘管的寻找,从而保证瘘管的完整切除,是一种简便、有效的治疗手段。

【关键词】 食管瘘

Pyriform sinus fistula in children with 41 cases. ZHANG Li-hong, LU Zhi-bao, XIAO Xian-min, et al. Children's Hospital of Fudan University. Shanghai 200032, China

【Abstract】 Objective To enhance the knowledge and show the advancements of diagnosis and treatment of pyriform sinus fistula. **Methods** 41 cases of pyriform sinus fistula were reported. There were 16 boys and 25 girls, aged from 9 months to twelve years and 3 months. 40 in the left neck, 1 in the right. 33 had ultrasonography, 20 CT scan, 29 scintigraphy, 39 esphagogram, 28 did the operation of fistulectomy, within 20 underwent gastroscopic assistant fistulectomy. 37 cases were followed up for 18 month to 17 years and 6 months. **Results** Ultrasonograph in 32 cases showed inflammatory swelling in the region of the left/right neck associated with the thyroid gland; CT scan showed abscess formation in the left/right side of the neck with involvement of left/right thyroid lobe; In 5 cases CT scan gave the direct diagnosis of pyriform sinus fistula; Scintigraph in 26 cases showed inflammation in the region of the left/right lobe of the thyroid gland, 2 cold nodules; Esphagogram showed the fistula; 10 patients did not use gastroscopic assistance, 8 had no recurrence and 2 had recurrence during the period of follow-up, 20 with gastroscopic assistance (within 10 cases had fistulectomy in other or our hospital), only 2 had recurrence; 9 got follow-up in 13 cases without operation, 5 got healing or in quiescency, 4 recurrence one more time. **Conclusions** Barium swallow during the period of quiescency is essential for the diagnosis, in addition, CT scan, ultrasonography, and scintigraphy are also of importance. Complete removal of the fistula is the choice of treatment. Gastroscopic assistant operation is a simple, quick and effective operation for children with pyriform sinus fistula.

【Keywords】 Pyriform sinus fistula; Diagnosis and treatment; Gastroscopic assistant

梨状窝瘘是一种少见的颈部鳃源性疾病,主要表现为反复发作的颈部感染性或化脓性甲状腺炎,临床上极易误诊。约 80% 的患者于儿童期发病。本院于 1990~2006 年收治 41 例,现报告如下。

资料与方法

一、临床资料

本组 41 例,男 16 例,女 25 例,年龄 9 个月至 12 岁 3 个月,中位年龄 6 岁 10 个月。左侧 40 例,右

作者单位:复旦大学附属儿科医院(上海,200032),E-mail:blue-bird79@126.com,通讯作者:吕志葆,E-mail:lvzhibao@sohu.com

侧 1 例。38 例左侧颈部、1 例右侧颈部有炎性肿块,伴发热及上呼吸道感染症状;2 例左侧甲状腺无痛性囊性肿块,术前疑诊为“甲状腺腺瘤”。

二、辅助检查

32 例有反复发作史,29 例形成脓肿,曾自然破溃或切开引流。10 例行脓液或渗液细菌学培养,结果显示主要是链球菌、葡萄球菌等。21 例于发作期行血清 T_3 、 T_4 和 TSH 检查无异常,1 例甲状腺摄碘率为 24%,明显低于正常。33 例行颈部超声显像检查,其中 32 例提示病变侧甲状腺实质不均质占位或软组织实质不均质占位,与甲状腺关系密切,甚至出现小区液化。20 例行 CT 检查,提示病变侧颈部炎性肿块或合并甲状腺内炎性占位,其中 5 例直接诊断为梨状窝瘘。29 例作甲状腺核素显像,26 例显示甲状腺左叶,特别是上极放射性稀疏,2 例呈“冷结节”,1 例未见异常。39 例待颈部炎症消退后作食管吞钡造影,均显示左侧或右侧梨状窝底部有垂直下行的细小瘘管,长度为 1.1 ~ 4.5 cm。

结 果

28 例行手术治疗,其中 10 例为 1999 年以前入院患儿,行单纯瘘管切除术(2 例复发患儿再次入院后经胃镜辅助治愈),20 例为 1999 年以后入院患儿,行胃镜辅助切除(其中 10 例在用胃镜辅助前曾在外院或本院行瘘管切除术)。2 例甲状腺核素显像呈“冷结节”、术前疑诊甲状腺腺瘤者,术中见肿块呈球形,直径 2 cm,位于甲状腺左叶内,囊壁厚 3 mm,囊内有少量脓性液体,因与原诊断不符,即仔细分离肿块上极,发现有细瘘管沿上述径路进入咽部肌肉。瘘管完整切除患者的病理检查均显示瘘管内衬鳞状上皮或假复层柱状上皮,伴大量炎性细胞浸润。

37 例获随访,随访时间 18 个月至 17 年 6 个月,10 例单纯切除病例中,8 例治愈,2 例复发,经胃镜辅助治疗痊愈;20 例胃镜辅助切除病例中,2 例复发;13 例未行手术病例中,9 例获访,5 例自愈或未发作,4 例仍反复发作。

讨 论

一、胚胎发生学及局部解剖学

梨状窝瘘为胚胎发育过程中鳃裂组织未完全退化残留而形成。约 90.3% 发生于左侧,可能与哺

乳动物胚胎发育过程中原始大动脉的消失,或鳃性组织右侧消失较早有关^[1]。大多数学者认为,梨状窝瘘起源于第 3 或第 4 鳃囊(或鳃裂)^[2]。起源于第 3 鳃囊(或鳃裂)的梨状窝瘘瘘管起自梨状窝的底部,喉上神经的上方,向上走行,环绕舌下神经后转下行于一侧颈部;而起源于第 4 鳃囊(或鳃裂)者,瘘管自梨状窝底部,由甲状软骨下缘外侧斜行从咽下缩肌穿出,在喉返神经外侧沿气管旁下行,经内侧、或外侧、或贯穿甲状腺组织,终止于甲状腺上极,甚至贯穿甲状腺左叶后,继续下行,终止于左胸锁关节后方。本院收治的 41 例患儿在吞钡检查和手术中发现均为第 4 鳃囊(或鳃裂)起源,故推断临床上大多数病例可能起源于第 4 鳃囊(或鳃裂)^[3]。瘘管外口可在沿胸锁乳突肌前缘的任一部位。也有一些病例仅有 1 个内口,而没有外口。

二、临床表现

本病多发生于儿童,男女比例均等。常急性起病,表现为一侧颈部(常位于颈前三角区)红肿疼痛,偶有颈部弥漫性肿大,可伴颈部淋巴结肿大,可因上呼吸道感染或口腔内感染而诱发,临床出现发热,咽痛,吞咽困难,绝大多数局部皮温升高,红肿疼痛,压痛明显,偶可因炎症侵及局部喉返神经或喉上神经而出现声带麻痹和区域性交感神经受损的表现。炎症进展后局部形成脓肿,自行破溃或切开引流后症状缓解。由于对其胚胎学、解剖学缺乏一定的了解,术者将其作为一般的颈部囊肿、第 1、2 鳃裂瘘管(或囊肿)或甲状舌管瘘(或囊肿)进行切除;不了解儿童左侧颈部急性感染和化脓性甲状腺炎常存在特有的病理基础;手术技术与方法缺陷使得瘘管不能完整切除等是临床上易反复发作的原因^[4]。感染也可形成咽后脓肿,甚至可扩展至纵隔,引起纵隔脓肿和脓胸。新生儿期可表现为颈部进行性增大肿块,伴或不伴呼吸窘迫^[5]。

三、诊断

当出现左侧颈部炎性肿块特别是反复发作,多次自行破溃或切开引流,脓液培养显示链球菌、双球菌等时应考虑梨状窝瘘的可能,急性期放射性核素扫描可见患侧甲状腺,尤其上极出现放射性稀疏或缺损,呈急性化脓性甲状腺炎的改变,而甲状腺功能却很少受到影响。超声波或 CT 检查在诊断梨状窝瘘方面很有帮助^[6],可显示甲状腺肿大并显现出局部或较大范围的不均质占位或低密度区,CT 检查如发现起源于梨状窝尖部的含气管道可以直接诊断,本院有 5 例经 CT 确诊。食管吞钡造影最有诊断

食管吞钡造影最有诊断价值。急性期因局部水肿,常不易发现瘘管,应在炎症消退 6~8 周后作该项检查。如发现梨状窝底部有长 2~3 cm 纤细管道经外侧向前下方延伸,即可确诊。或在内镜下找到梨状窝开口,同时压迫化脓感染的甲状腺,有脓液从开口部位排出时,也可作出诊断;或脓肿破溃在胸锁乳突肌前缘的任一部位形成瘘管外口,自外口插入细的导管逆行造影,亦可作出诊断。

四、治疗

1. 急性期: 应给予抗感染治疗,采用包括抑制厌氧菌在内的广谱抗生素或根据细菌培养结果选用敏感抗生素。脓肿形成时,部分病例可自然破溃或应及时切开引流,脓肿消退后症状多能缓解。感染消退后,可行完整的瘘管切除以避免复发,部分病例在炎症反应后自然愈合,若复查时钡餐检查未发现瘘管或瘘管非常纤细或变细,且发作次数少的病例,可暂不手术^[1]。

2. 手术切除瘘管: 完整切除瘘管是避免复发的关键。对于未感染和或易于寻找瘘管的病例,手术完整切除的机会较大。而临床上很多时候寻找瘘管并不容易,因为梨状窝瘘管位置深、细小、行径易变异,且大多数系复发性或反复感染、引流病例,瘘管及周围组织糜烂坏死或致密粘连,术中瘘管更难以辨认,很易造成喉返神经等重要组织的损伤。此时正确选择适当的支撑技术对于完整切除瘘管非常重要。Makino^[7]等用微咽镜在口咽部寻找瘘管内口,插入前端带有球囊或无囊的导管作为引导分离瘘管,取得良好效果。但此项技术需五官科医师协助完成,临床应用稍有不便。有时在手术区域对可疑瘘管注射美蓝或试插导管,常不能很好地显露瘘管,反而会影响手术的进一步进行,导致手术失败。胃镜辅助^[4]不失为一种更好的选择,其手术方法是鼻插管麻醉,平卧,颈过伸。取颈部横切口 5 cm,梭形切除原切开引流瘢痕或手术切口瘢痕,充分游离颈阔肌皮瓣,沿瘘管周围肉芽、纤维组织行径分离肌肉组织,找到甲状腺左叶上极,经环甲肌表面达甲状软骨下角附近。行程中仔细寻找瘘管,并谨慎操作,避免损伤喉上神经外支和喉返神经。复发性或反复感染、引流病例,瘘管及周围组织糜烂坏死或致密粘连,瘘管寻找困难和(或)瘘管走向难以辨认。此时从口腔插入胃镜,寻及病变侧梨状窝,试插导管,如导管插入瘘管,术者以导管为引导分离瘘管。如导管不能进入远处瘘管,则将导管顶着梨状窝内口处注入美蓝,美蓝进入瘘管即可作为引导

(大多在甲状腺左叶上极、甲状软骨下角附近有美蓝自瘘口溢出)。术者在导管或美蓝引导下继续谨慎分离瘘管至最高位,通常于左甲状软骨下角深部 10 mm 以上以不吸收线双重结扎后切除瘘管。切口置皮片引流,术后 1~2 d 拔除。术后 2~3 d 继续口服甲硝唑,静脉滴注头孢唑啉钠。本院自 1999 年后应用胃镜辅助切除瘘管 20 例,术后均恢复顺利,发音正常,进食无呛咳,切口 I 期愈合;平均随访 4 年 8 个月,只有 2 例复发,显示了胃镜辅助的优越性。

另外, Kim^[8-9]等使用三氯乙酸(化学烧灼法)烧灼梨状窝内口治疗该类患者获得成功; Cigliano^[10]等用纤维蛋白胶在内镜辅助下注入梨状窝瘘的内口进行治疗并取得较好效果,但远期效果有待临床上进一步观察。

参考文献

- 1 肖现民, 曾纪骅, 金百祥. 儿童梨状窝瘘的诊断与处理[J]. 中华外科杂志, 1997, 35: 354-356.
- 2 Franciosi JP, Sell LL, Conley SF, et al. Pyriform sinus malformations: a cadaveric representation [J]. Journal of Pediatric Surgery, 2002, 37(3): 533-538.
- 3 Erisen L, Coskun H, Parlak M, Ozmen A. Fourth branchial arch anomaly and pyriform sinus fistula as a rare cause of recurrent retropharyngeal abscess and thyroiditis in an adult [J]. Otolaryngol Head Neck Surg, 2005, 133(4): 644.
- 4 吕志葆, 肖现民, 郑珊, 等. 儿童梨状窝瘘反复发作的原因与胃镜辅助手术[J]. 中华小儿外科杂志, 2005, 26(1): 17-19.
- 5 Mizuno R, Yamazaki Y, Yoshida T, Kurobe M. Pyriform sinus fistula appearing as a neck tumor in the neonatal period: a case report [J]. Pediatr Surg Int, 1998, 14: 82-83.
- 6 Hsin Kai Wang, Chui Mei Tiu, Yi Hong Chou, et al. Imaging studies of pyriform sinus fistula [J]. Pediatr Radiol, 2003, 33: 328-333.
- 7 Makino S, Toshiaki T, Yoshioka H, et al. The endoscopic and surgical management of pyriform sinus fistulae in infants and children [J]. J Pediatr Surg, 1986, 21: 398-401.
- 8 Kwang kyun kim, et al. Pyriform sinus fistula: Management with chemocauterization of the internal opening [J]. The Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology, 2000, 109(5): 452-456.
- 9 Monica Stenquist, Claes Juhlin, et al. Fourth Branchial Pouch Sinus with Recurrent Deep Cervical Abscesses Successfully Treated with Trichloroacetic Acid Cauterization [J]. Acta Otolaryngol, 2003, 123: 879-882.
- 10 Cigliano B, Cipolletta L, Baltogiannis N, et al. Endoscopic fibrin sealing of congenital pyriform sinus fistula [J]. Surgical Endoscopy, 2004, 18(3): 554-556.

作者: 张立洪, 吕志葆, 肖现民, [ZHANG Li-hong](#), [LU Zhi-bao](#), [XIAO Xian-min](#)
作者单位: [复旦大学附属儿科医院, 上海, 200032](#)
刊名: [临床小儿外科杂志](#) 
英文刊名: [JOURNAL OF CLINICAL PEDIATRIC SURGERY](#)
年, 卷(期): 2008, 7(3)
被引用次数: 0次

参考文献(10条)

1. [Erisen L;Coskun H;Parlak M;Ozmen A](#) [Fourth branchial arch anomaly and pyriform sinus fistula as a rare cause of recurrent retropharyngeal abscess and thyroiditis in an adult](#) 2005(04)
2. [Franciosi JP;Sell EL;Conley SF](#) [Pyriform sinus malformations:a cadaveric representation](#) 2002(03)
3. 肖现民;曾纪骅;金百祥 [儿童梨状窝瘘的诊断与处理](#) 1997
4. [Cigliano B;Cipolletta L;Baltogiannis N](#) [Endoscopic fibrin sealing of congenital pyriform sinus fistula](#) 2004(03)
5. [Monica Stenquist;Claes Juhlin](#) [Fourth Branchial Pouch Sinus with Recurrent Deep Cervical Abscesses Successfully Treated with Trichloroacetic Acid Cauterization](#) 2003(7)
6. [Kwang kyun kim](#) [Pylriform sinus fistula:Management with chemocauterization of the internal opening](#) 2000(05)
7. [Makino S;Toshiaki T;Yoshioka H](#) [The endoscopic and surgical management of pyriform sinus fistulae in infants and children](#) 1986
8. [Hsin Kai Wang;Chui Mei Tin;Yi Hong Chou](#) [Imaging studies of pyriform sinus fistula](#) 2003
9. [Mizuno R;Yamazaki Y;Yoshida T;Kurobe M](#) [Pyriform sinus fistula appearing as a neck tumor in the neonatal period:a case report](#) 1998
10. 吕志葆;肖现民;郑珊 [儿童梨状窝瘘反复发作的原因与胃镜辅助手术](#)[期刊论文]-[中华小儿外科杂志](#) 2005(01)

本文链接: http://d.wanfangdata.com.cn/Periodical_lcxewkzz200803012.aspx

授权使用: 黔南民族师范学院(gnnzsfxy), 授权号: 21b68e41-2725-413e-b81b-9ed4010342ba

下载时间: 2011年4月29日