

DOI: 10.12235/E20220527

文章编号: 1007-1989 (2023) 08-0083-06

声门下腔囊肿的诊断和治疗*

周淼, 黄寒, 钟礼立, 陈敏, 丁小芳, 林琳, 魏桑子

(湖南省人民医院 儿童医学中心, 湖南 长沙 410000)

摘要: 目的 总结分析声门下腔囊肿患儿的诊断及治疗经验。**方法** 回顾性分析2015年3月—2021年3月该院儿童医学中心呼吸介入科收治的8例声门下腔囊肿患儿的诊疗经过, 描述性研究及统计其临床表现及预后情况。**结果** 获得性声门下腔囊肿患儿多以早产低出生体重儿伴有气管插管病史为主, 病程中易出现反复呼吸道感染、生长发育迟缓、喉鸣和气促等症状。声门下腔囊肿发病年龄多为1岁左右, 囊肿以右侧单发为主, Myer-Cotton II度及以上采用内镜介入治疗, Myer-Cotton I度多随访, 预后可, 但有复发的可能。**结论** 对于有插管病史的早产低出生体重患儿, 若在出生后出现反复呼吸道感染、生长发育迟缓、喉鸣和气促等症状, 需警惕声门下腔囊肿的发生, 狭窄严重者需介入治疗, 但狭窄程度轻者可随访观察, 介入治疗后有复发可能。

关键词: 声门下腔囊肿; 纤维支气管镜; 儿童; 喉气管狭窄; 介入治疗

中图分类号: R767.44

Diagnosis and treatment of subglottic cyst*

Zhou Miao, Huang Han, Zhong Lili, Chen Min, Ding Xiaofang, Lin Lin, Wei Sangzi

(Children's Medical Center, Hunan Provincial People's Hospital,

Changsha, Hunan 410000, China)

Abstract: Objective To summarize and analyze the diagnosis and treatment experience of children with subglottic cyst. **Methods** From March 2015 to March 2021, the diagnosis and treatment of 8 children with subglottic cysts were retrospectively analyzed, and their clinical manifestations and prognosis were studied and statistically analyzed. **Results** Most of the children with acquired subglottic cysts were preterm and low birth weight children with a history of tracheal intubation. During the course of the disease, they were prone to recurrent respiratory tract infection, growth retardation, laryngeal ringing, shortness of breath and other symptoms. The age of onset of the subglottic cysts was mostly about 1 year old. The cysts were mainly single on the right side. Endoscopic intervention was used for Myer-Cotton II and above. Most of the patients with Myer-Cotton I were followed up, these cases had a good prognosis, but could recur. **Conclusion** For premature low birth weight children with intubation history who have recurrent respiratory tract infection, growth retardation and shortness of breath after birth, it is necessary to be alert to the occurrence of subglottic cyst. Patients with severe stenosis need interventional treatment, but those with mild stenosis can be followed up for observation. There is a possibility of recurrence after interventional treatment

Keywords: subglottic cyst; fibrobronchoscope; children; laryngotracheal stenosis; interventional therapy

收稿日期: 2022-08-27

*基金项目: 儿童呼吸病学湖南省重点实验室课题资助 (No: 2019TP1043)

随着医疗条件及救治水平的提高,喉气管狭窄的发现率也逐渐上升,内镜技术的发展和普及,使得喉气管狭窄的诊疗手段逐步增加^[1-2]。而在儿童喉气管狭窄的病例报道中,声门下腔囊肿诊疗较为少见,而预后随访的开展,国内更为罕见^[3-5]。本研究对8例声门下腔囊肿病例进行总结,以提高临床医师对于此类疾病的认识,增加治疗经验。

1 资料与方法

1.1 一般资料

回顾性分析2015年3月—2021年3月湖南省人民医院儿童医学中心呼吸介入科收治的8例声门下腔囊肿患儿的诊疗经过。在家属签署知情同意书后,行纤维支气管镜检查,并完善喉部增强CT。其中,女4例,男4例,年龄12(7.35, 18.00)个月。除病例5因介入治疗后复查入院,其余病例均因下呼吸道感染就诊,症状以气促和喉鸣为主。8例患儿均为早产儿,妊娠周期为 (30.21 ± 1.15) 周,7例为低出生体重儿,出生体重为 $1.39(1.22, 2.20)$ kg。其中,6例为极低出生体重儿。8例患儿均有新生儿期气管插管病史。其中,病例1、2、5和7有反复气管插管病史。8例患儿均有新生儿肺炎病史,7例患儿有新生儿急性呼吸窘迫综合征病史,5例患儿有反复呼吸道感染病史,病例5有反复呼吸道介入治疗病史。病例8出生后持续有喉鸣,病例1出生后持续有轻度呼吸困难。5例患儿体重落后,6例患儿生长发育落后。病例2喉部增强CT提示声门下腔囊肿,余均未发现异常。

1.2 设备

1.2.1 纤维支气管镜 日本Olympus公司生产的BF-P260F(外径4.0 mm)纤维支气管镜,工作孔道为2.0 mm; BF-XP260F(外径2.8 mm)纤维支气管镜,工作孔道为1.2 mm。

1.2.2 激光治疗设备 大华激光医用激光光纤。

1.2.3 冷冻治疗设备 德国生产的ERBE ERBOKRYO CA冷冻治疗仪,冷冻探头外径1.8 mm。

制冷剂为二氧化碳。

1.2.4 球囊 根据狭窄部位、程度和范围的不同,分别选择美国波士顿科学国际有限公司的冠脉球囊,以及常州久虹医疗器械有限公司的冠脉球囊和迈瑞医疗的充盈压力泵。

1.2.5 监护设备 迈瑞医疗的BeneView T8监护仪。

2 结果

2.1 8例病例的临床特点

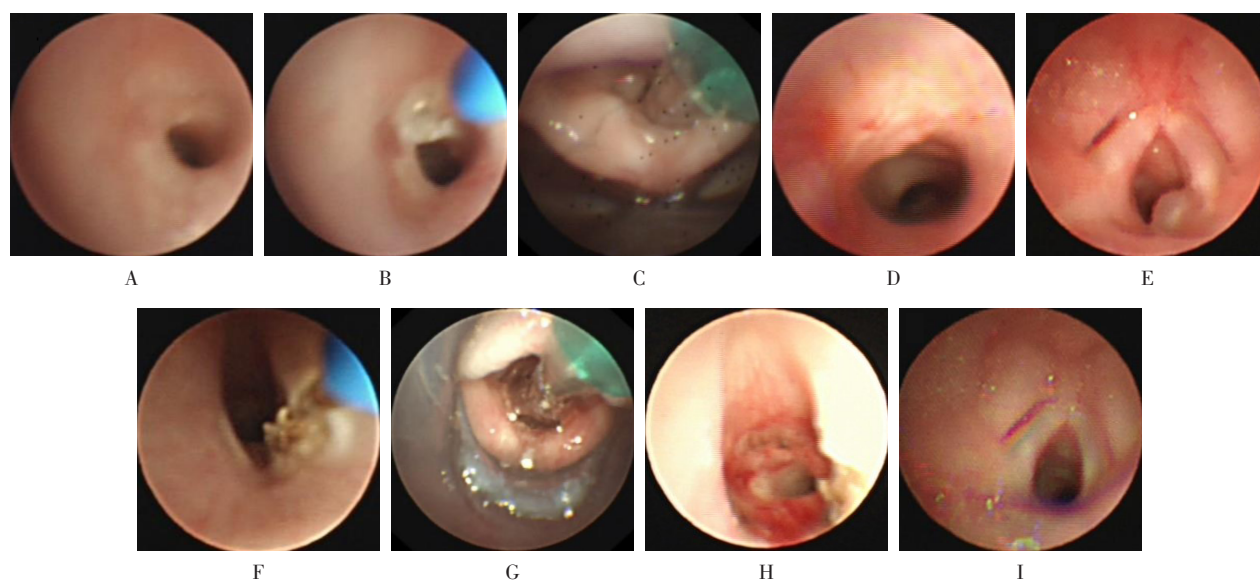
多以单发声门下腔囊肿为主,病例1、3和4为多发声门下腔囊肿,发生位置常位于声门下腔右侧。所有患儿均伴有声门下腔狭窄,根据气道狭窄Myer-Cotton分度^[6],病例3、4、5和6声门下腔狭窄为Myer-Cotton I_b度,病例1和2声门下腔狭窄达Myer-Cotton II_b度,病例7声门下腔狭窄达Myer-Cotton II_a度,病例8为Myer-Cotton III_b度。其中,病例5合并呼吸功能不全,患儿均合并气道软化。

2.2 治疗情况

8例病例中,4例气道狭窄达Myer-Cotton II度及以上患儿均采用了内镜介入治疗,主要包括:激光、冷冻和钳夹等介入治疗,并联合抗反流治疗。虽然病例5气道狭窄为Myer-Cotton I_b度,但因其系出生后气道瘢痕形成所致,故采用激光和球囊扩张等介入治疗(图1)。5例内镜介入患儿的介入治疗时间为4(3.50, 4.50)个月,治疗 (7.80 ± 4.07) 次,随访 (27.60 ± 14.45) 个月。病例1半年后因重症肺炎和肺炎链球菌感染,于内镜复查过程中发现新发小囊肿,且9个月内无增长。见图2。

2.3 随访情况

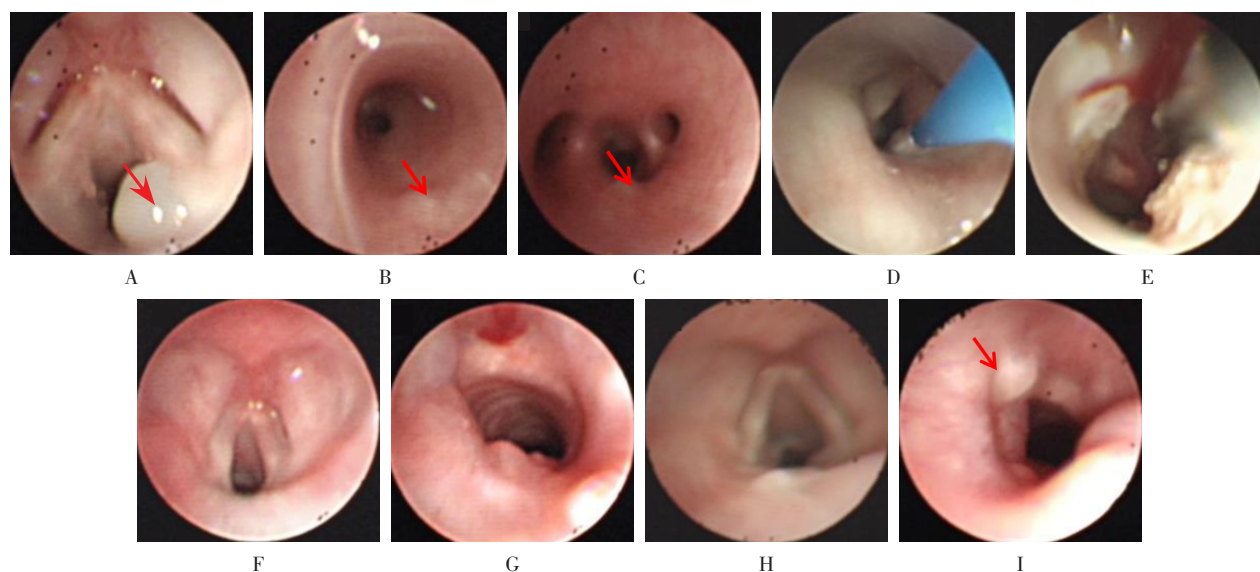
除病例1以外,其他所有介入治疗病例预后均无加重和复发。除病例5以外,其他3例Myer-Cotton I度患儿需要进行随访观察,治疗合并症。其中,病例3家属拒绝行介入治疗后进行随访观察,病例4和病例6因气道狭窄程度较轻,仅进行随访观察(图3)。电话随访病例3,体重增长欠佳,无症状加重;病例4和病例6体重有增加,无症状加重。



A: 声门下约0.5 cm处可见环形瘢痕狭窄, 外径2.8 mm的支气管镜不能通过; B: 于环形狭窄处多点激光消融; C: 用外径6.0 mm的球囊扩张狭窄段; D: 5个月后复查, 可见原环形狭窄处较前扩大; E: 声门下腔右后侧壁可见一半透明水泡样囊状物, 质软, 遮挡约1/5 ~ 1/4管腔; F: 激光消融; G: 球囊扩张; H: 声门下腔囊肿热消融后5个月复查, 可见局部狭窄处较前明显扩张; I: 热消融后8个月, 声门下腔未见囊肿。

图1 病例5诊疗经过

Fig.1 The case 5 diagnosis and treatment process



A: 声门口及声门下囊肿 (箭头所指), 狭窄程度为Myer-Cotton II_b度; B: 气管上段结节样囊肿 (箭头所指); C: 下叶开口后壁平右肺中间支开口处囊肿 (箭头所指); D: 激光治疗; E: 钳夹声门下腔坏死物; F: 激光治疗3个月, 第5次复查采用纤维支气管镜观察声门口; G: 激光治疗3个月, 第5次复查采用纤维支气管镜观察声门下腔; H: 激光治疗1年后, 第9次复查采用纤维支气管镜观察声门口; I: 激光治疗1年后, 第9次复查采用纤维支气管镜观察声门下腔, 见左侧囊肿 (箭头所指)。

图2 病例1诊疗经过

Fig.2 The case 1 diagnosis and treatment process



图3 随访情况

Fig.3 Follow-up situation

3 讨论

3.1 声门下腔囊肿的临床现状

声门下腔囊肿极为罕见,关于此类囊肿的流行病学调查相关文献很少。有文献^[7]提到,每10万先天性喉囊肿中仅存活1.82例,尤其以获得性声门下腔囊肿较为多见。获得性声门下腔囊肿形成的原因:声门下的气道因声门下腔侵袭和随后的瘢痕形成,导致囊肿,最常见的是机械通气过程中,气管插管的“气道活塞效应”或反复插管及吸痰造成的损伤^[5, 8]。也有文献^[9-11]提示,在长期插管后,可患有声门下囊肿。而国内的流行病学调查^[3]结果表明,儿童良性中央气道因气管插管导致的获得性气道狭窄,也是声门下腔狭窄原因之一。本研究中,8例患儿均为早产儿,且大多为低出生体重患儿,这些因素导致新生儿出现出生后窒息和呼吸困难等症状的概率明显增加,需要气管插管甚至反复气管插管的情况增多,且新生儿多采用无囊气管插管,在常规固定气管插管中,其活动度也相对较大。以上原因造成了本研究中患儿声门下腔囊肿的形成。这些患儿起病年龄多为1岁左右,与AGADA等^[5]的总结基本一致。本研究中,病例5因反复气道狭窄,在气道介入治疗过程中,发现声门下腔囊肿,患儿病程中存在反复呼吸道感染,镜下可见合并气道软化,采用抗反流治疗有效,提示:除反复气管插管以外,反复感染及胃食管反流也是声门下腔囊肿形成的原因。

3.2 声门下腔囊肿的诊断

声门下腔囊肿的诊断主要基于以下因素^[12]: 1) 反复插管和早产病史,体格检查有震颤及喘鸣等表

现; 2) 内镜的评估; 3) 影像学检查, 仅能作为参考, 而不是诊断性的。本研究中, 患儿病史均符合诊断要素, 内镜下表现为声门下区半透明或白色囊样病变, 激光穿透后, 可见透明囊液流出, 有单发和多发, 但以右侧为主, 与国外流行病学调查的左侧多发^[13-14]相反, 考虑原因为: 本研究病例好发位置与气管插管过程中, 操作者多为右手持气管插管有关。声门下腔囊肿增强CT多表现为低密度灶囊性病变, 无强化影, 本研究患儿影像学发现率低, 考虑与CT扫描厚度及囊肿大小相关。

3.3 声门下腔狭窄的治疗

目前, 对于声门下腔狭窄的处理原则^[15]为: 解除狭窄, 以建立通畅的气道为目标, 同时, 尽可能地保留和改进发音和吞咽保护功能。FORTE等^[9]提出了一种新的基于囊肿范围和起源胚胎组织的先天性囊肿分类系统, 将先天性声门下腔囊肿分为I型(囊肿局限于喉, 囊肿壁仅由内胚层组成, 可通过内镜处理)和II型(囊肿超过喉的范围, 需要从外部入路)。根据起源的胚胎组织进一步亚分类: II_a型仅由内胚层组成, II_b型囊肿壁含有内胚层和中胚层成分(上皮和软骨)。获得性声门下腔囊肿的治疗方法包括: 观察、显微外科造袋术、显微清创切除术和激光消融^[5, 8, 11-16]。一项105例声门下腔囊肿的大样本调查^[8]显示, 16%的患者最终需进行气道重建, 甚至有部分患者需要进行喉气管重建。无论采用哪种治疗方法, 复发都是较为常见的, 且2/3以上的病例发现一种或多种合并症, 有将近一半以上的病例可出现复发, 与术式无关, 但复发性囊肿不见得是治疗失败所致, 有

可能是黏膜瘢痕的进一步后遗症^[10, 13, 16]。另外,有专家^[17]认为,围手术期处理也非常重要,声门下腔狭窄介入治疗术中使用抗生素应持续7 d,术后常规推荐使用抗反流药物6周,确诊胃食管反流者需要使用3个月,术后应尽早通过鼻饲管进食,5~7 d后复查内镜。本研究中,患儿多因合并感染导致气道梗阻症状加重而就诊,在处理感染的同时,对于狭窄程度较轻者,未进行介入治疗干预,随访观察过程中,无梗阻症状加重表现,而对于狭窄程度较重且合并气道软化或存在呼吸困难的患儿,采取介入干预治疗解决气道梗阻情况,术后同样予以抗反流治疗,呼吸梗阻症状好转。其中,仅有1例患儿在介入治疗半年后,出现新发小囊肿,考虑原因为:病程中有反复介入治疗及感染病史,新发囊肿系介入治疗后局部黏膜瘢痕形成后遗症可能性大。

综上所述,对于早产低出生体重患儿,要注意后期随访,特别是有气管插管病史的患儿,因喉鸣和气促就诊者,如其有早产低出生体重或既往反复感染及生长发育迟缓,需警惕气道狭窄的可能。完善影像学检查过程中,需完善喉部影像学检查,内镜检查更是十分重要。在治疗上,获得性声门下腔囊肿处理,需根据其狭窄程度来进行选择。除介入治疗外,亦可随访观察。另外,有无合并症、是否累及声门和声带活动性,也是需要明确和解决的问题。即便进行了介入或手术治疗,后期仍需要进一步随访,警惕声门下腔囊肿复发的可能。

参 考 文 献 :

- [1] 周涛,张莉,付四毛,等.电子支气管镜在儿童上气道梗阻性疾病中的诊断价值[J].中国小儿急救医学,2011,18(3):223-225.
- [1] ZHOU T, ZHANG L, FU S M, et al. Clinical value of bronchovideoscope in the diagnosis of pediatric upper airway obstruction[J]. Chinese Pediatric Emergency Medicine, 2011, 18(3): 223-225. Chinese
- [2] 殷勇,张磊.儿童中心气道狭窄的支气管镜下微创治疗进展[J].中华实用儿科临床杂志,2013,28(16):1207-1209.
- [2] YIN Y, ZHANG L. Progress in minimally invasive treatment of central airway stenosis in children under bronchoscopy[J]. Chinese Journal of Applied Clinical Pediatrics, 2013, 28(16): 1207-1209. Chinese
- [3] 焦安夏,饶小春,马渝燕,等.儿童良性中央气道狭窄133例病因分析[J].山西医科大学学报,2010,41(6):559-562.
- [3] JIAO A X, RAO X C, MA Y Y, et al. Analysis of etiopathogenesis of benign central airway stenosis in 133 cases[J]. Journal of Shanxi Medical University, 2010, 41(6): 559-562. Chinese
- [4] 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.
- [4] LIU S S, WANG C, LI J, et al. Five cases of subglottic cysts[J]. Chinese Journal of Applied Clinical Practice, 2021, 36(2): 134-136. Chinese
- [5] AGADA F O, BELL J, KNIGHT L. Subglottic cysts in children: a 10-year review[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2006, 70(8): 1485-1488.
- [6] MONNIER P. Pediatric airway surgery[M]// HARTNICK C J, HANSEN M C, GALLAGHER T Q. Pediatric airway surgery. Switzerland: Karger, 2012: 107-117.
- [7] TRIGLIA J M, PORTASPANA T, CANNONI M, et al. Subglotticcyst in a newborn[J]. J Laryngol Otol, 1991, 5(3): 222-223.
- [8] BOWLES P F D, READING J, ALBERT D, et al. Subglottic cysts: the Great Ormond Street experience in 105 patients[J]. Eur Arch Otorhinolaryngol, 2020, 278(6): 2137-2141.
- [9] FORTE V, FUOCO G, JAMES A. A new classification system for congenital laryngeal cysts[J]. Laryngoscope, 2004, 114(6): 1123-1127.
- [10] DOWNING G J, HAYEN L K, KILBRIDE H W. Acquired subglottic cysts in the low-birth-weight infant. Characteristics, treatment, and outcome[J]. Am J Dis Child, 1993, 147(9): 971-974.
- [11] RANSOMA E R, ANTUNES M B, SMITH L P, et al. Microdebrider resection of acquired subglottic cysts: case series and review of the literature[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2009, 73(12): 1833-1836.
- [12] STEEHLER M K, GROBLEWSKI J C, MILMOE G J, 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] 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.
- [14] 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.
- [15] 中华医学会耳鼻咽喉头颈外科学分会咽喉学组,中华医学会耳鼻咽喉头颈外科学分会嗓音学组,中华医学会中华耳鼻咽喉头颈外科杂志编辑委员会咽喉组.喉气管狭窄诊断与治疗专家共识[J].中华耳鼻咽喉头颈外科杂志,2018,53(6):

- 410-413.
- [15] Subspecialty Group of Laryngopharyngology, Society of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, Chinese Medical Association, Subspecialty Group of Voice, Society of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, Chinese Medical Association, Subspecialty Group of Laryngopharyngology, Editorial Board of Chinese Journal of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery. Expert consensus on diagnosis and treatment of laryngotracheal stenosis[J]. Chinese Journal of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, 2018, 53(6): 410-413. Chinese
- [16] RICHARDSON M A, WINFORD T W, NORRIS B K, et al. Management of pediatric subglottic cysts using the bugbee fulgurating electrode[J]. JAMA Otolaryngol Head Neck Surg, 2014, 140(2): 164-168.
- [17] 崔鹏程. 婴幼儿喉气管狭窄的诊治[J]. 中国医学文摘耳鼻喉科学, 2013, 28(1): 22-24.
- [17] CUI P C. Diagnosis and treatment of laryngotracheal stenosis in infants and young children[J]. Chinese Medical Digest: Otorhinolaryngology, 2013, 28(1): 22-24. Chinese
- (彭薇 编辑)

本文引用格式:

周森, 黄寒, 钟礼立, 等. 声门下腔囊肿的诊断和治疗[J]. 中国内镜杂志, 2023, 29(8): 83-88.

ZHOU M, HUANG H, ZHONG L L, et al. Diagnosis and treatment of subglottic cyst[J]. China Journal of Endoscopy, 2023, 29(8): 83-88. Chinese