

DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.2018040012

· 论 著 ·

成人颈部囊性水瘤外科治疗(附9例报道)

黄朝平^{1,2},刘良发²,路承²,张奥博²,董研博²,葛鑫颖²,朱力¹

(1. 成都医学院第一附属医院耳鼻咽喉头颈外科,四川成都610500; 2. 首都医科大学附属北京友谊医院耳鼻咽喉头颈外科,北京100054)

摘要: **目的** 回顾性分析9例成人颈部囊性水瘤患者的临床病例资料,总结对该病的外科治疗。**方法** 收集2014年4月~2017年6月首都医科大学附属北京友谊医院耳鼻咽喉头颈外科诊治的9例成人颈部囊性水瘤患者的临床资料,其中男5例,女4例;年龄18~63岁。均为单侧发病,其中左侧4例,右侧5例。根据de Serres分期Ⅰ期5例,Ⅱ期及Ⅲ期各2例;水瘤位于咽旁间隙7例,颈后三角1例,舌骨前下方1例。**结果** 所有患者均经颈外径路完整切除,随访5~38个月未见复发。2例出现Horner征,自行恢复,无其他严重并发症。**结论** 对于成人颈部囊性水瘤患者,手术应作为治疗的首选方式,完整剥离并切除囊壁是减少复发的关键。

关键词:囊性水瘤;颈部;淋巴管瘤;颈部;淋巴系统畸形;外科手术
中图分类号:R739.91;R653 **文献标识码:**A [中国耳鼻咽喉颅底外科杂志,2018,24(4):356-360]

Surgical treatment of cervical cystic hygroma in adult
(a report of 9 cases)

HUANG Chao-ping^{1,2}, LIU Liang-fa², LU Cheng², ZHANG Ao-bo², DONG Yan-bo², GE Xin-ying², ZHU Li¹
(1. Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, the First Affiliated Hospital of Chengdu Medical College, Chengdu 610500, China; 2. Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Beijing Friendship Hospital, Capital Medical University, Beijing 100054, China)

Abstract: **Objective** To study the surgical treatment of cervical cystic hygroma in adult. **Methods** Clinical data of 9 adult patients suffering from cervical cystic hygroma surgically treated in our department from April 2014 to June 2017 were analyzed retrospectively. Of them, 5 were male and 4 were female with an age range from 18 to 63 years. All the hygromas were unilateral with left side in 4 cases and right side in 5. According to the de Serres stage system, 5 patients were at stage I, 2 were at stage II and another 2 at stage III. As for the tumor site, 7 were in the parapharyngeal space, one was in the posterior cervical triangle, and one anteroinferior to the hyoid bone. All patients underwent surgical treatment. **Results** Cystic hygroma was completely removed via external cervical approach in all cases. Horner syndrome occurred in 2 patients and got recovered spontaneously. All patients had been followed up for 5 to 38 months postoperatively, neither recurrence nor serious complications occurred. **Conclusion** Surgical treatment is the preferred choice for cervical cystic hygroma in adult. Complete stripping and excision of cystic wall is the key to reduce recurrence.
Key words: Cystic hygroma, cervical; Lymphangioma, cervical; Lymphatic malformation; Operation, surgical
[Chinese Journal of Otorhinolaryngology-Skull Base Surgery, 2018, 24(4): 356-360]

囊性水瘤(Cystic Hygroma)是一种少见的淋巴系统先天性畸形疾病,最多见于颈部(75%~80%),绝大多数(90%以上)发生于2岁以下的婴幼儿,成人发病率极低^[1]。颈部囊性水瘤因囊壁菲薄,常与颈部重要的神经血管关系密切,手术难度较大,复发率较高,手术并发症相对较多,对于此病治疗方式尚有争议^[2],我们最近收治了9例成年人囊性水瘤的患者,均进行了手术治疗,效果较好,现报道如下。

基金项目:北京市教委面上项目(KM201510025026);北京友谊医院启动课题(yyqdk2014-23,yydszx2015-02)。
作者简介:黄朝平,男,在读博士,主治医师。
通信作者:刘良发,Email:liuliangfa301@263.net

1 资料与方法

1.1 临床资料

收集2014年4月~2017年6月首都医科大学附属北京友谊医院耳鼻咽喉头颈外科诊治9例成年人颈部囊性水瘤患者临床资料,其中男5例,女4例;年龄18~63岁;所有患者均为单侧发病,其中左侧4例,右侧5例;位于咽旁间隙7例,颈后三角1例,舌骨前下方1例。依据de Serre分期^[3],Ⅰ期5例,Ⅱ期2例,Ⅲ期2例。所有患者均为无意中发现颈部肿物,且是第1次接受治疗。1例患者伴随打鼾症状,但无明显呼吸困难症状,其他均无疼痛、破溃、吞咽呼吸困难及周围神经麻痹症状。患者一般情况见表1、2。

表1 9例囊性水瘤患者的基本资料							
序号	年龄(岁)	性别	发现肿物时间	其他症状	囊肿类型	有无复发	术后并发症
1	25	男	20 d	打鼾	多囊	无	无
2	22	男	5个月	无	单囊	无	无
3	30	女	1个月	无	单囊	无	Horner征
4	18	男	10 d	无	多囊	无	无
5	63	男	5个月	无	单囊	无	无
6	22	男	2年	无	多囊	无	无
7	36	女	4个月	无	多囊	无	无
8	35	女	1周	无	单囊	无	Horner征
9	21	女	3个月	无	多囊	无	无

表2 9例患者的de Serres分期		
分期	例数	囊性水瘤所在位置
Ⅰ	5	单侧舌骨以下
Ⅱ	2	单侧舌骨以上
Ⅲ	2	单侧舌骨上及舌骨下
Ⅳ	0	双侧舌骨以上
Ⅴ	0	双侧舌骨上及舌骨下

1.2 术前检查

所有患者均行颈部超声检查,2例行颈部CT扫描,5例行颈部MRI检查,2例同时行CT及MRI扫描,影像学检查为颈部囊性表现,其中分叶状多囊为5例,单囊为4例。CT表现为多房或单房行水样密度肿物,密度均匀或不均匀,CT值0~25 Hu,可沿疏松结缔组织间隙“爬行”生长,增强扫描肿物主体不增强(图1A、B)。在MRI上表现为T1WI呈等信号或低信号,T2WI呈高信号,增强MRI肿物内部不增强,可临近甚至压迫颈部重要血管神经等结构,但与周围组织边界较清楚(图1C、D、E)。术前诊断囊性水瘤5例,鳃裂囊肿者3例,未知来源的囊肿1例,其中3例于术前行穿刺细胞学检查,考虑为囊性水瘤。

1.3 手术方法

所有患者均在全麻下经颈外径路行肿物切除术,根据肿物的不同大小及位置,选择沿皮纹的弧形或斜行切口,舌骨下或颈后三角者在颈阔肌深面找到囊壁进行分离,位于咽旁间隙者在颈阔肌深面分离皮瓣,向前或向后分离牵拉胸锁乳突肌,暴露囊壁表面后沿囊壁仔细分离,保护舌咽神经、副神经、舌下神经、颈动脉鞘及其内重要结构,直视下将肿物完全切除。由于囊壁菲薄,分离时须格外仔细,可借双极电凝帮助分离,减少渗血;若囊肿体积较大,可抽出部分囊液减压后再行分离;若分离是囊壁破裂,及时以细圆针缝合,避免过度牵拉,务必保证将囊壁完全切除(图2A、B)。冲洗术腔,留置高负压引流球,待引流液少于10 ml/d后,可拔除引流管,适当加压包扎。

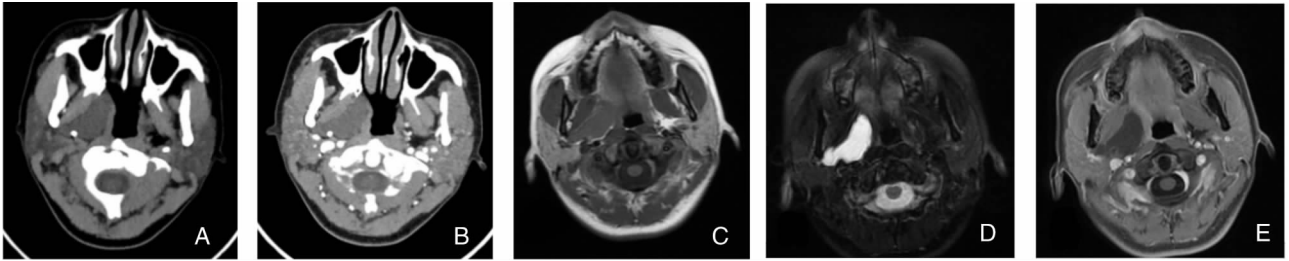


图1 咽旁间隙囊性水瘤的CT及MRI影像表现 A:轴位CT扫描示右侧咽旁间隙囊性密度影;B:轴位增强CT扫描示右侧咽旁间隙肿物不增强;C:轴位MRI T1WI肿物呈低信号;D:轴位MRI T2WI可见肿物呈明显高信号;E:轴位MRI T1WI增强扫描见囊性部分未增强

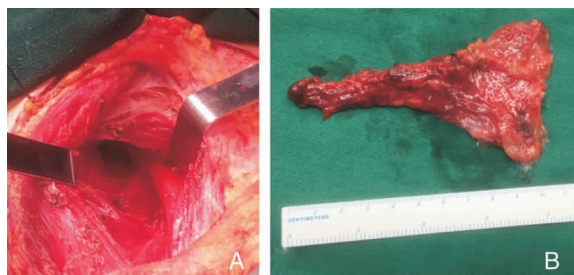


图2 1例下颈部囊性水瘤术中照片 A:左侧下颈部囊性水瘤切除术后术腔,深达上纵隔达肺尖平面;B:同一患者完整切除的囊性水瘤标本

2 结果

所有患者均完整切除肿物,术后2例出现暂时性的Horner综合征,2~3个月后消失,其余患者未出现明显并发症,重要神经血管功能均完全保留。术后经病理诊断均为囊性水瘤。随访5~38个月,无一例复发者。

3 讨论

3.1 囊性水瘤的发病机制及临床表现

囊性水瘤又称为淋巴管瘤(Lymphangioma),是一种少见的先天性淋巴系统畸形,由于胚胎发育过程中淋巴管及静脉系统出现发育畸形所致,它并非真正的肿瘤^[4]。由于2岁以前是淋巴管发育生长最快的时期,因此该病多见于此年龄段。文献报道成年人发病的原因多与创伤、感染、肿瘤或者医源性创伤有关^[5],但本组成年人患者却未见上述因素。囊性水瘤最常见的发病部位为颈部(约占80%)。颈部囊性水瘤临床症状根据其部位、大小、深度及范围而异,多表现为无痛性质软肿块,随体积的增长,囊性水瘤压迫周围组织,如压迫迷走神经、颈交感干可能出现咳嗽、Horner征,压迫咽侧壁可能引起吞咽障碍。与小儿患者不同,成年人很少出现呼吸困难,本组患者均无呼吸困难,因含大量清亮液体,透光试验为阳性。

3.2 囊性水瘤的诊断

影像学检查主要依靠彩超、CT及MRI。彩超能方便快捷提供囊肿自身的血流情况以及其与周围组织的关系。囊性水瘤在CT中典型特征为沿疏松结缔组织间隙呈“爬行性”生长,多数与周围组织结构分界清晰,肿块常体积较大,可压迫邻近结构^[6]。由

于囊性水瘤内充满淋巴液,MRI在T2WI上呈高信号,囊壁及分隔呈低信号,T1WI上等信号、低信号或混杂信号,增强扫描囊壁及分隔呈轻-中度强化,囊腔无强化^[7]。我们观察到MRI能够更好地显示囊性水瘤的结构及与周围解剖结构的关系,有助于术前诊断和手术方案的制定。此外,穿刺活检是一种具有重要诊断价值的检查方法。本组有3例于术前进行B超引导下穿刺细胞学涂片检查,均为可见较多或大量淋巴细胞,考虑囊性水瘤。因此,术前穿刺涂片可以明确诊断,排除其他囊性疾病。

3.3 囊性水瘤的治疗

颈部囊性水瘤的治疗包括手术、腔内注射硬化剂、激光、冷冻等多种方式。其治疗方法的选择决定于多种因素,包括如发病年龄、生长速度、病灶位于单侧/双侧、深度、范围、与舌骨的关系、局部解剖特点、潜在风险等,不同的学者对此观点不一,Zhou等^[8]在2011年提出了头颈部囊性水瘤的治疗指南,明确提出,对于该病的治疗需要根据患者的实际病情并结合医师的专业水平选择最优的个体化方案。

当病灶过度压迫气道出现呼吸困难时,可行穿刺减压,保持呼吸道通畅,但穿刺抽液仅仅是缓兵之计,对囊性水瘤疾病本身无治疗作用。放射治疗对囊性水瘤无效,且放射线有潜在风险,应避免放疗。Ogita等^[9]首先报道采用OK-432对囊性水瘤进行硬化剂治疗,可以避免重要血管神经损伤,研究也证实OK-432确实是一种比较好的治疗方式^[10-11],最近一项大样本研究也提示硬化剂注射与手术切除在复发率方面没有显著差异^[2]。国内对囊性水瘤的非手术治疗多采取注射平阳霉素。硬化剂对单囊或较小的囊性水瘤效果较好^[12],但对于多囊或较大的囊性水瘤则需多次注射,且可能存在过敏、感染形成脓肿等毒副反应;若注射硬化剂后囊肿未消除,前期无菌性炎症造成的囊壁与周围组织粘连会影响手术者对层次的判断,增加手术并发症和复发率。

早在100年前,有学者就认为手术切除是治疗颈部囊性水瘤的常规方式^[13],但那时的手术复发率高达44%。随着对疾病认识的加深及技术改进,复发率逐渐下降至约8.3%~30%,术后复发率及并发症发生率的高低与病变的分期及年龄是否小于2岁密切相关^[14-15]。针对成人颈部囊性水瘤,我们的经验是只要de Serres III期以下的病例,都尽可能一期完整手术切除,而2岁以下或de Serres IV期以上的病灶则需根据具体情况综合选择治疗方式。我

们认为手术指针包括:①肿物压迫周围组织出现神经功能、呼吸或吞咽障碍;②肿物有增大趋势;③避免继发性感染;④影响美观,患者同意手术;⑤囊肿体积巨大,包绕重要血管神经,虽无法一次性完整切除,为解除压迫,可行部分或次全切除,然后结合其他治疗。

术中务必保护好颈总动脉、颈内动脉、迷走神经及分支、舌下神经、副神经、颈丛神经、臂丛神经及颈交感干等重要血管神经,靠近颈根部时需注意保护胸导管、淋巴导管、肺尖甚至锁骨下血管^[16]。由于囊性水瘤具有“见缝就钻”的特点,术中若粘连较重,须小心分离周围组织,细致止血保持术野干净,囊性水瘤壁菲薄,我们推荐使用头戴式放大镜,在辨清结构的前提下可局部锐性分离,或使用针状双极电凝边凝边分离,既可有效分离又能减少出血,分离时可附带一薄层周围结缔组织以防破裂。若囊性水瘤体积较大,分离时影响视野,可抽出部分囊液,使体积缩小后暴露范围增大,有利于囊肿完整剥离;若肿物位于咽旁前间隙,位置较高靠近颅底,可辅助内镜或显微镜操作,在茎突后间隙要特别注意后组脑神经的保护^[17]。部分囊性水瘤体积可增大至颈根部、与胸膜顶相贴,操作时需防止损伤胸膜顶,若撕裂,应立即严密缝合。术后通畅的负压引流和适当的加压包扎是封闭死腔预防感染的有效措施。囊性水瘤的手术并发症包括复发、血肿、感染、Horner综合征、乳糜漏、慢性窦道形成、颈段食管损伤、颈丛、臂丛及第Ⅸ~Ⅻ对脑神经损伤、术后呼吸道阻塞等^[18]。我们这9例患者经手术切除后有2例出现暂时性的Horner综合征,比例相对较高,可能与囊性水瘤压迫椎前筋膜、术中对颈交感干牵拉或部分细小分支离断有关,2例患者均在2~3个月时间内恢复,证实颈交感干主干未断裂。术中务必认清层次,避免不必要的副损伤。其余患者未出现明显并发症。经随访未见复发,效果良好。

除了传统的颈外径路手术切除术,最近台湾学者在国际上第一次报道机器人辅助下经耳后发际径路成功切除颈部囊性水瘤^[19],这种隐藏式的小切口对于患者的美观及生活质量都有很大提高,也将是未来囊性水瘤外科治疗的一个热点方向。若囊性水瘤位于舌骨上方(高级别de Serres分期),更易累计舌、口底、咽、面颊或多个解剖部位时,手术切除可能具有较高的并发症。有如下情况下手术需慎重^[8]:①囊性水瘤累及了唇、舌、面颊部,全切会导致组织

缺损及功能缺陷;②病灶与周围组织的界限不清;③病变累及到后组脑神经、重要脉管,完整切除可能导致严重并发症,如面瘫、大出血、乳糜漏、Horner综合征等。结合文献及本组病例的经验,我们认为手术禁忌症包括:病变范围广,累及喉腔、下咽、食道及软腭等重要结构,手术切除会导致组织缺损严重影响功能者;病变累及面颈部皮肤,手术切除会导致皮肤缺损者为相对禁忌证。此类情况需优先选择硬化剂注射、电凝、冷冻,或结合手术的综合治疗,也可经多学科团队(MDT)讨论后择优而行,这样可以将严重并发症的发生率降至最低。

4 结论

颈部囊性水瘤在成人较罕见,手术可作为成人颈部囊性水瘤的首选治疗方式,Horner综合征是较常见的并发症,手术效果不仅与病变的部位、大小、分期等有关,更与良好的术前评估、术者的经验及手术技巧有密切关系,完整剥离囊壁是减少复发的关键。

参考文献:

- [1] Lyazidi Y, Bakkali T, Zoulati M, et al. Drop-attacks revealing a cervical cystic lymphangioma[J]. Ann Vasc Surg, 2016, 31: 208, e5-7.
- [2] Balakrishnan K, Menezes MD, Chen BS, et al. Primary surgery vs primary sclerotherapy for head and neck lymphatic malformations[J]. JAMA Otolaryngol Head Neck Surg, 2014, 140(1): 41-45.
- [3] de Serres LM, Sie KC, Richardson MA. Lymphatic malformations of the head and neck: a proposal for staging[J]. Arch Otolaryngol Head Neck Surg, 1995, 121(5): 577-582.
- [4] Wiegand S, Eivazi B, Barth PJ, et al. Pathogenesis of lymphangiomas[J]. Virchows Arch, 2008, 453(1): 1-8.
- [5] Kandakure VT, Thakur GV, Thote AR, et al. Cervical lymphangioma in adult[J]. Int J Otorhinolaryngol Clin, 2012, 4(3): 147-150.
- [6] 马亚辉,胡全树,邹医. 颈部淋巴管瘤的CT诊断价值[J]. 中国血液流变学杂志, 2016, 26(1): 133-134.
Ma YH, Hu QS, Zou Y. Diagnostic value of CT for diagnosis of cervical lymphangioma[J]. Chinese Journal of Hemorheology, 2016, 26(1): 133-134.
- [7] 徐杨飞,俞咏梅,丁治民,等. 淋巴管瘤的CT及MRI表现[J]. 皖南医学院学报, 2016, 35(4): 388-391.
Xu YF, Yu YM, Ding ZM, et al. CT and MRI features of lymphangioma[J]. Acta Academiae Medicinae Wannan, 2016, 35(4): 388-391.

- [8] Zhou Q, Zheng JW, Mai HM, et al. Treatment guidelines of lymphatic malformations of the head and neck[J]. *Oral Oncol*, 2011, 47(12):1105-1109.
- [9] Ogita S, Tsuto T, Nakamura K, et al. OK-432 therapy in 64 patients with lymphangioma[J]. *J Pediatr Surg*, 1994, 29(6):784-785.
- [10] Hazim M, Moses SS, Tan IP. Intralesional injection of OK-432 in cystic hygroma[J]. *Med J Malaysia*, 2016, 71(6):328-330.
- [11] Efe N, Altas E, Mazlumoglu MR, et al. Excellent result with the use of single-dose OK-432 in cervical macrocystic lymphangioma[J]. *J Craniofac Surg*, 2016, 27(7):1802-1803.
- [12] 庄林. 平阳霉素瘤内注射治疗囊性水瘤 25 例临床分析[J]. *临床和实验医学杂志*, 2009, 8(11):111-112.
- Zhuang L. Clinical analysis of Pingyangmycin intratumor injection in the treatment of cystic lymphangioma in 25 cases[J]. *Journal of Clinical and Experimental Medicine*, 2009, 8(11):111-112.
- [13] Dowd CN. XI. Hygroma cysticum colli: its structure and etiology[J]. *Ann Surg*, 1913, 58(1):112-132.
- [14] Kamal A AM, Hassaneina, Ahmed G, et al. Outcome of surgical excision of head and neck lymphatic malformations in children[J]. *Egypt J Oral Maxillofac Surg*, 2017, 1(8):1-7.
- [15] Fliegelman LJ, Friedland D, Brandwein M, et al. Lymphatic malformation: predictive factors for recurrence[J]. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2000, 123(6):706-710.
- [16] 李永奇, 刘贤, 谢民强, 等. 颈部囊性淋巴管瘤 8 例临床分析[J]. *中国耳鼻咽喉颅底外科杂志*, 2001, 7(1):122-123.
- Li YQ, Liu Xi, Xie MQ, et al. Clinical analysis of 8 cases of cervical cystic lymphangioma[J]. *Chinese Journal of Otorhinolaryngology-Skull Base Surgery*, 2001, 7(1):122-123.
- [17] 亓卫东, 孙广滨, 陈仲春, 等. 咽旁隙肿瘤的手术治疗[J]. *中国耳鼻咽喉颅底外科杂志*, 2017, 23(5):444-448.
- Qi WD, Sun GB, Chen ZC, et al. Surgical treatment of parapharyngeal space tumors[J]. *Chinese Journal of Otorhinolaryngology-Skull Base Surgery*, 2017, 23(5):444-448.
- [18] Okazaki T, Iwatani S, Yanai, et al. Treatment of lymphangioma in children: our experience of 128 cases[J]. *J Pediatr Surg*, 2007, 42(2):386-389.
- [19] Lin FC, Yang TL, Tung MC, et al. Robot-assisted excision of cervical cystic hygroma through a retroauricular hairline approach: a case report[J]. *J Med Case Rep*, 2016, 10:154-156.
- (收稿日期:2017-10-28)

(上接第355页)

- [19] 计早, 韩佳利, 阎艾慧. 人乳头瘤病毒感染在鼻内翻性乳头状瘤中的表达及临床意义[J]. *中国医科大学学报*, 2015, 44(4):323-326.
- Ji Z, Han JL, Yan AH, et al. Expression and clinical significance of human papillomavirus infection in nasal inverted papilloma[J]. *Journal of China Medical University*, 2015, 44(4):323-326.
- [20] Lin H, Lin D, Xiong XS. Roles of human papillomavirus infection and stathmin in the pathogenesis of sinonasal inverted papilloma[J]. *Head Neck*, 2016, 38(2):220-224.
- [21] Scheel A, Lin G C, Mchugh J B, et al. Human papillomavirus infection and biomarkers in sinonasal inverted papillomas: clinical significance and molecular mechanisms[J]. *Int Forum Allergy Rhinol*, 2015, 5(8):701-707.
- [22] Jalilvand S, Saidi M, Shoja Z, et al. The prevalence of human papillomavirus infection in Iranian patients with sinonasal inverted papilloma[J]. *J Chin Med Assoc*, 2016, 79(3):137-140.
- [23] Valibeigi B, Ashraf M J, Kerdegari N, et al. Prevalence of human papilloma virus in sinonasal papilloma in Southern Iranian population[J]. *J Dent (Shiraz)*, 2017, 18(2):143-148.
- [24] Syrjänen S, Happonen RP, Virolainen E, et al. Detection of human papillomavirus (HPV) structural antigens and DNA types in inverted papillomas and squamous cell carcinomas of the nasal cavities and paranasal sinuses[J]. *Acta Otolaryngol*, 1987, 104(3-4):334-341.
- [25] Castle PE, Porras C, Quint WG, et al. Comparison of two PCR-based human papillomavirus genotyping methods[J]. *J Clin Microbiol*, 2008, 46(10):3437-3445.
- [26] Giotakis E, Gomatos IP, Alevizos L, et al. Apoptotic and proliferative status in HPV (+) and HPV (-) inverted papilloma patients. Correlation with local recurrence and clinicopathological variables[J]. *Pathol Res Pract*, 2012, 208(6):338-343.
- [27] Fan GK, Imanaka M, Yang B, et al. Characteristics of nasal inverted papilloma and its malignant transformation: a study of cell proliferation and programmed cell death[J]. *Am J Rhinol*, 2006, 20(3):360-363.
- [28] Roh HJ, Mun SJ, Cho KS, et al. Smoking, not human papilloma virus infection, is a risk factor for recurrence of sinonasal inverted papilloma[J]. *Am J Rhinol Allergy*, 2016, 30(2):79-82.
- (收稿日期:2018-01-02)