

DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202005016

· 论著 ·

显微支撑喉镜下低温等离子微创治疗 儿童先天性梨状窝瘘

陈伟,倪坤,顾美珍,陈佳瑞,陈淑梅,郑阳阳,闻建,李晓艳

(上海市儿童医院 上海交通大学附属儿童医院 耳鼻咽喉头颈外科,上海 200062)

摘要: **目的** 探讨显微支撑喉镜下低温等离子微创治疗儿童急性感染期(AIS)与炎症静止期(IQS)先天性梨状窝瘘(CPSF)的临床疗效。**方法** 回顾性分析2017年12月—2019年12月上海交通大学附属儿童医院收治并行低温等离子微创治疗的51例CPSF患者临床资料,其中AIS 22例,IQS 29例,2组患儿均在气管插管全麻支撑喉镜下行低温等离子射频消融封闭梨状窝内瘘口,而AIS的患儿同期行颈部脓肿切开引流术,留置纱条,术后每日颈部换药。全部患儿术后留置胃管2周,应用抗生素治疗7~10 d。观察其疗效、术后复发率及并发症。**结果** 3例处于IQS的患儿分别于术后第5、6、7天因颈部脓肿形成行切开排脓手术,换药4 d后痊愈。2例AIS的患儿术后出现一过性声嘶,于术后1个月内恢复正常。术后随访2~26个月,1例IQS患儿术后半年复发,2次全麻内镜下低温等离子内瘘口烧灼术,其余50例CPSF内瘘口1次封闭,未发生咽瘘、喉返神经损伤、大出血等并发症,无复发,疗效显著。**结论** 推荐显微支撑喉镜下低温等离子微创根治术作为CPSF的首选疗法,对于IQS的CPSF宜实施单纯内瘘口烧灼术,但术前充分告知家属,术后可能因颈部局部脓肿形成,需要切开引流、换药,对于AIS的CPSF,不必等待炎症控制以后,直接同期行颈部脓肿切开引流术。

关键词:先天性梨状窝瘘;显微支撑喉镜;低温等离子;儿童

中图分类号:R766.5

Minimally invasive treatment of congenital pyriform sinus fistula in children by low temperature plasma under microscopic laryngoscope

CHEN Wei, NI Kun, GU Meizhen, CHEN Jiarui, CHEN Shumei, ZHENG Yangyang, WEN Jian, LI Xiaoyan

(Department of Otolaryngology Head and Neck Surgery, Shanghai Children's Hospital, Children's Hospital Affiliated to Shanghai Jiao Tong University, Shanghai 200062, China)

Abstract: **Objective** To explore the clinical effect of minimally invasive treatment for congenital pyriform sinus fistula (CPSF) of acute infection stage (AIS) and inflammatory quiescence stage (IQS) in children by low temperature plasma under microscopic laryngoscope. **Methods** Clinical data of 51 children with CPSF treated by low temperature plasma minimally invasive therapy in our hospital from Dec 2017 to Dec 2019 were analyzed retrospectively. Of them, 22 cases were in the AIS and 29 cases were in the IQS. The fistula was closed by low temperature plasma radiofrequency ablation under general anesthesia and laryngoscope in both groups. For those of the AIS, incision and drainage of neck abscess was performed and followed by retained gauze and daily dressing change. All patients were kept gastric intubation for 2 weeks and treated with antibiotics for 7 to 10 days. The curative effect, recurrence rate and complications of the two groups were observed. **Results** Three patients in the IQS underwent incision and drainage of neck abscess on the 5th, 6th and 7th day after operation, and recovered after 4 days of dressing change. Two children in the AIS had transient postoperative hoarseness and got recovered within one month. The follow-up period ranged from 2 to 26 months. Fistula recurred in one patient of IQS half a year after operation, and got cured with the second cauterization of internal fistula by low temperature plasma under general anesthesia and laryngeal endoscope. The internal fistula of CPSF was closed once in

基金项目:上海申康医院发展中心市级医院临床研究培育项目(20873999)。

第一作者简介:陈伟,男,硕士,主治医师。

通信作者:李晓艳,Email: submissionent@163.com

the other 50 cases. In all the 51 cases, no complications such as pharyngeal fistula, recurrent laryngeal nerve injury and massive hemorrhage occurred. **Conclusions** Low temperature plasma minimally invasive surgery under microscopic laryngoscope is recommended as the preferred therapy for CPSF. For CPSF in the IQS, only internal fistula cauterization is needed with adequate preoperative information about the risk of neck abscess followed with incision and drainage of abscess as well as daily dressing change. For the treatment of CPSF in the AIS, fistula closure should be performed with simultaneous incision and drainage of neck abscess rather than the control of the acute inflammation.

Keywords: Congenital pyriform sinus fistula; Microscopic laryngoscope; Low temperature plasma; Child

先天性梨状窝瘘(congenital pyriform sinus fistula, CPSF)是一种临床少见的颈部鳃源性病变,好发于儿童,系胚胎发育过程中第三或第四咽囊退化不全所致,临床主要表现为反复发作的颈部脓肿和急性化脓性甲状腺炎^[1-2]。目前文献多以病例报道为主,大宗病例报道极其少见,经常被误诊、漏诊^[2-3]。传统的治疗方法是待炎症静止期(inflammatory quiescent stage, IQS)行颈外径路完整切除瘘管,急性感染期主要是药物积极抗感染、脓肿切开引流等保守治疗,颈外入路手术创伤大、操作难度大、并发症多、颈部瘢痕形成影响美观^[4-5]。近年来,随着技术的进步,陆续有学者报道内镜下电烧灼、化学烧灼、CO₂激光烧灼等方法治疗 CPSF,因其微创、安全、有效的特点被逐渐应用,但是各自的弊端也逐渐暴露^[6-8]。国内外使用低温等离子射频消融治疗 CPSF 的报道极少, IQS 更是一直被认为内镜下手术的必备条件^[9-10],全球给予急性炎症期(acute infection stage, AIS)患儿行内镜下低温等离子微创治疗 CPSF 的全文报道寥寥数篇^[4, 11-12]。本科室采用显微支撑喉镜下低温等离子烧灼封闭 CPSF 内瘘口,治疗 AIS 和 IQS 的患儿 CPSF,观察其临床疗效,以期给目前儿童 CPSF 的治疗提供新的参考。本研究得到我院医学伦理委员会批准。

1 资料与方法

1.1 一般资料

回顾性分析 2017 年 12 月—2019 年 12 月我科收治并行低温等离子微创治疗的 51 例 CPSF 患者临床资料,所有患儿均经术前检查或术中探查确诊为 CPSF,具体临床资料见表 1。其中男 23 例,女 28 例,年龄 22 d 至 15 岁,中位数年龄 5.5 岁。CPSF 内瘘口位于左侧者 50 例(AIS 22 例, IQS 28 例),右侧者 1 例(IQS 1 例)。窦道型 50 例(AIS 22 例, IQS 28 例),瘘管型 1 例(IQS 1 例)。除去 2 例 AIS 患儿,其余 49 例入院前都有过抗生素治疗史。临床表现反复颈部红肿 42 例(AIS 16 例, IQS

26 例)。46 例有过误诊、漏诊史:35 例曾被误诊为颈部脓肿(AIS 13 例, IQS 22 例),其中 25 例有过切开排脓史(AIS 6 例, IQS 19 例),1 次切开者 11 例,2 次切开者 7 例,切开引流 ≥ 3 次者 7 例;5 例曾误诊为急性甲状腺炎;3 例为颈部囊性肿块(AIS 1 例, IQS 2 例);1 例为淋巴管瘤;1 例为甲状舌管囊肿;1 例血肿。3 例开放性瘘管切除史(AIS 1 例, IQS 2 例)。

表 1 51 例 CPSF 患者基本临床资料 (例)

临床因素	AIS(n=22)	IQS(n=29)
性别(男/女)	10/12	13/16
发病范围(左/右)	22/0	28/1
手术年龄中位数(岁)	6	5
类型(窦道/瘘管)	22/0	28/1
入院前的治疗		
抗生素	20	29
切开排脓	6	19
开放性切除	1	2
临床症状		
反复颈部红肿	16	26
颈部脓肿	13	22
颈部囊肿	1	2
住院中位数(d)	5	3
并发症		
声嘶	2	0
吞咽困难	0	0
颈部红肿	0	3
复发	0	0

注:CPSF:先天性梨状窝瘘;AIS:急性感染期;IQS:炎症静止期。

本次研究中,所有患儿术前常规行纤维喉镜、颈部增强 CT,颈部 B 超检查,最后均在全麻支撑喉镜下发现梨状窝内瘘口而确诊。20 例门诊纤维喉镜检查发现梨状窝内瘘口(20/51, 39.2%)。颈部增强 CT 主要表现为:现起源于梨状窝的含气管道、甲状腺内侧见管状样结构,内含点、片状气体影、甲状腺下角处含气腔隙存在、甲状腺炎症改变(图 1),32 例诊断为 CPSF(32/51, 62.7%)。颈部 B 超可探及瘘管(条索状、管状低回声连通体表或皮下)、患侧甲状腺上部区域内气体回声、患侧颈深部软组织炎性-脓肿形成并与甲状腺关系密切(图 2),31 例

诊断为 CPSF(31/51,60.8%)。

1.2 手术方法

两组患儿均在气管插管全麻显微支撑喉镜下行低温等离子射频消融封闭梨状窝内瘘口,而 AIS 患儿同期行颈部脓肿切开引流术。

IQS(29例):气管插管全麻,显微支撑喉镜下挑起并充分暴露患侧梨状窝,确定 CPSF 内瘘口(图3),用稀释的碘伏在瘘口以及管腔内进行消毒,使用喉部专用等离子刀,插入瘘口大约 0.5 cm,注意控制深度,避免损伤喉返神经,7 档消融,3 档电凝,由内向外给予充分烧灼(图4),至内瘘口及周围黏膜结焦,创面止血,缓慢退出支撑喉镜,使 CPSF 口黏膜自然闭合(图5)。

AIS(22例):气管插管全麻,显微支撑喉镜下低温等离子射频消融联合患侧颈部脓肿切开引流术。先给予射频喉刀消融梨状窝内瘘口,方法与 IQS 的 CPSF 一致,对于部分瘘口周围组织肿胀,寻找内瘘口困难的,助手轻轻地按压颈部包块,梨状窝处有分泌物溢出处即是内瘘口或者用低温等离子刀头轻轻

推拨可疑瘘口处的黏膜,可暴露内瘘口。然后对患侧颈部皮肤常规消毒铺巾,于脓肿最隆起处做横切开,可见脓液流出,分别用过氧化氢溶液、碘伏、生理盐水冲洗术腔,放置碘仿引流条(图6、7)。

1.3 CPSF 治愈的标准

同时符合以下两个标准为治愈^[13-14]:①无颈部肿痛、吞咽疼痛等颈部病变症状;②喉镜检查显示内瘘口瘢痕形成、闭合。术后随访期内出现上述临床症状或者喉镜显示内瘘口未闭合则为复发。

2 结果

所有患儿术后留置胃管 2 周,应用抗生素治疗 7~10 d。3 例 IQS 患儿分别于术后第 5、6、7 天因颈部脓肿形成而行切开引流术,换药 4 d 后痊愈。2 例 AIS 患儿术后出现一过性声嘶,于术后 1 个月内恢复正常。术后随访 2~26 个月,1 例 IQS 患儿术后半年复发,2 次行内镜全麻下内瘘口烧灼术,其余 50 例 CPSF 内瘘口 1 次封闭,无并发症,无复发。

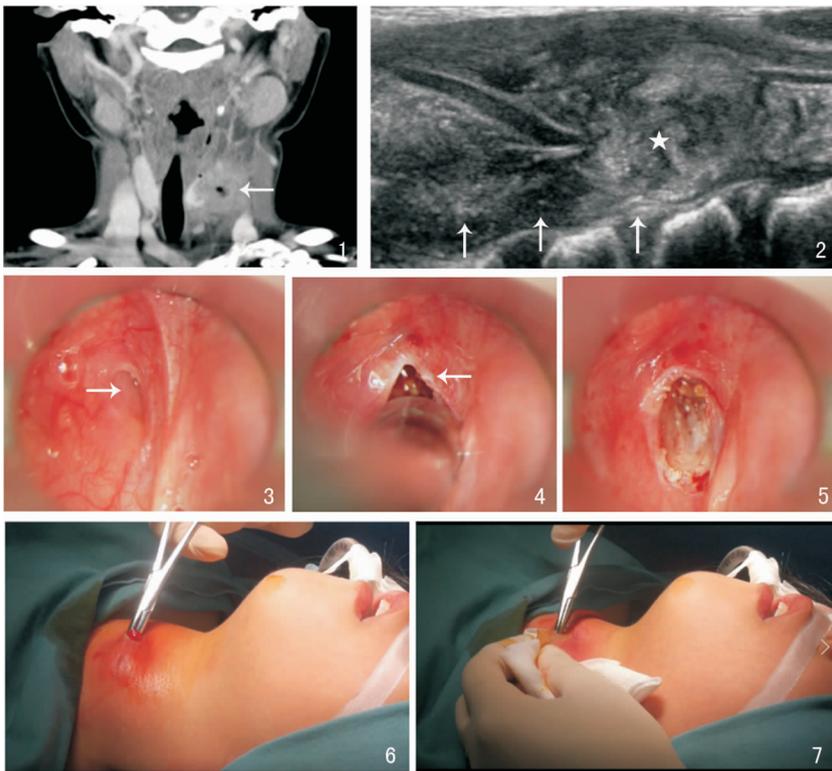


图1 颈部增强 CT 可见 CPSF 的典型征像:甲状腺左叶上极、环甲关节附近见组织内含气腔隙(箭头所示)伴有颈部脓肿形成

图2 颈部 B 超示瘘管(箭头)管径粗细不等,内部回声不均匀,甲状腺左叶(五角星)边界模糊,内见点状回声 **图3** 支撑喉镜下发现内瘘口(箭头所示) **图4** 利用低温等离子射频喉刀消融内瘘口(箭头所示) **图5** 低温等离子烧灼后的梨状窝 **图6** 颈部皮肤常规消毒铺巾后,于脓肿最隆起处切开,并用血管钳撑开,可见脓液流出 **图7** 术腔抽脓,并给予过氧化氢溶液、碘伏、生理盐水冲洗术腔,术后放置引流碘仿纱条

3 讨论

CPSF 是罕见的颈部鳃源性疾病,是胚胎发育过程中鳃裂组织未能完全退化残留而形成,男女无差异,90%发生在左侧,本组 CPSF 位于左侧者 50 例(50/51,98%),男女比例为 1:1.2,与文献报道相符^[15]。理论上,CPSF 可表现只有一个内口而没有外口,即窦道,亦可因脓肿造成颈部皮肤破溃或者切开引流而在皮肤形成开口,形成瘘管,大部分病灶表现为窦道而非瘘管^[3,16],本研究中 50 例窦道,1 例瘘管。由于 CPSF 发病率低,瘘管走行及其内瘘口不易确定,以及临床医生对此病认识不足,使得该病的误诊率及治疗后复发率均很高,常被误诊为颈部脓肿和化脓性甲状腺炎,接受长时间的反复抗感染、脓肿切开引流术,但这并非梨状窝瘘的根治性疗法^[17-18]。甲状腺包膜完整,局部血供和淋巴回流丰富,而且碘离子浓度高,既不易发生自身组织的原发性细菌感染,又不易被邻近组织器的感染病灶所累及,但由于 CPSF 瘘管穿过或终止于甲状腺侧叶上极,炎症易扩散至甲状腺,形成甲状腺脓肿,临床表现反复发作的颈深部感染或难治性化脓性甲状腺炎,特别是左侧的,此时应想到梨状窝瘘^[2,4,11]。本次研究与上述文献报道一致。

CPSF 的临床表现虽然典型,但却无特异性,支撑喉镜确认梨状窝内瘘口存在是诊断 CPSF 的金标准,但必须全麻制约了这一检查的广泛应用。纤维喉镜往往因为感染期时瘘口周围组织水肿或瘘口处于闭合状态而出现假阴性,本组 20 例门诊纤维喉镜检查发现梨状窝内瘘口(20/51,39.2%)。所以需要影像学检查辅助诊断,颈部增强 CT、颈部 B 超可判断瘘管走行、毗邻关系,出现环甲关节内侧、下缘或甲状腺上极组织内含气腔隙、含气脓肿等典型征象^[19-20],但诊断率与医生经验密切相关^[21]。本组患儿 32 例颈部增强 CT 诊断为 CPSF(32/51,62.7%),31 例 B 超诊断为 CPSF(31/51,60.8%)。食管钡餐造影检查婴幼儿难以配合吞咽造影剂,而且还可因内瘘口周围炎症反应、局部软组织水肿,形成区域性闭合,常显示为阴性,MRI 费用高、周期长,不推荐作为一线诊断工具^[3]。所以我科近年来对于疑似 CPSF 的患儿,颈部 B 超、纤维喉镜和颈部增强 CT 作为首选诊断工具,最终确诊条件为:全麻支撑喉镜下探查、确定 CPSF 内瘘口的存在。

传统治疗 CPSF 的方法是开放性手术切除瘘管

和部分甲状腺组织,手术需在 IQS 进行,以防止感染、出血、喉返神经损伤等并发症,手术难度大,易复发,并发症多^[2,11]。本组有 3 例 CPSF 曾于外院行开放性瘘管切除术(AIS 1 例,IQS 2 例),因术后复发来我院就诊。1998 年,Jordan 等^[22]首先报道了内镜下电烧灼术治疗 CPSF,术后 18 个月随访期内未出现并发症及复发。此后,许多学者又尝试了其他内镜技术治疗 CPSF,如激光烧灼、化学烧灼、纤维蛋白胶黏合、缝合等^[5,7-8,18]。内镜技术治疗 CPSF 优势明显,包括操作简单、术时短、创伤小、并发症少、术后颈部美观不留瘢痕、可重复操作、住院时间短、手术费用低,疗效与传统术式等同^[11]。但是,随着内镜技术的展开,各自的弊端也逐步呈现出来。电烧灼和 CO₂ 激光烧灼术治疗 CPSF,温度是 400 ~ 1 000℃,对周围组织热损伤较大,容易引起喉上神经和喉返神经损伤,同时需要预防激光火灾^[5]。三氯醋酸烧灼等化学灼内瘘口治疗 CPSF,烧灼深度和范围不易控制,常需要多次烧灼,可能导致食管狭窄^[15],术后出现短暂声嘶^[13]。有学者于该烧灼后再行内瘘口缝扎术^[23],术时长、难度大,并未被广泛应用。纤维蛋白凝胶等生物胶治疗 CPSF,例数太少,临床效果不确定。IQS 一直被认为是内镜治疗 CPSF 的前提条件^[9-10],但 CPSF 易反复,且间隔时间长短不一,鉴于上述内镜技术各自的不足及手术时机的局限性,探索一种更加安全、简便、能在急性感染期同样可行的微创疗法,在临床显得极为迫切。本科室采用低温等离子技术,两组患儿均在气管插管全麻显微支撑喉镜下行低温等离子射频消融封闭 CPSF 内瘘口,而 AIS 患儿同期行颈部脓肿切开引流术,留置纱条,术后每日颈部换药,所有患儿术后留置胃管 2 周,应用抗生素治疗 7 ~ 10 d,预防下咽感染,并促进局部黏连和内瘘口闭合。3 例 IQS 患儿分别于术后第 5、6、7 天因颈部脓肿形成而行脓肿切开引流术,换药 4 d 后痊愈。2 例 AIS 患儿术后出现一过性声嘶,于术后 1 个月内恢复正常。术后随访 2 ~ 26 个月,只有 1 例炎症静止期患儿术后半年再次因颈部红肿入院,二次全麻内镜下低温等离子内瘘口烧灼术,其余 50 例 CPSF 内瘘口 1 次封闭,无并发症,无复发,疗效显著。相比之下,我们认为低温等离子烧灼治疗 CPSF 有如下几个优势:能在相对较低的温度下(40 ~ 70℃)工作,减轻对瘘口周围组织与神经血管的热损伤;手术时间更短、创伤更小、并发症更少,对于复发者可重复烧灼;对于急性感染期患儿伴颈部脓肿形成者,低温等离子术可与

脓肿切开引流同期进行。

所以笔者推荐,显微支撑喉镜下低温等离子微创根治术,作为 CPSF 的首选疗法,对于 IQS 的 CPSF,单纯内瘘口烧灼术,但术前充分告知家属,术后可能因颈部局部脓肿形成,需要切开引流、换药,对于急性感染期的 CPSF,不必等待炎症控制以后,直接同期行颈部脓肿切开引流术。鉴于随访时间较短,病例数较少,依然有待进一步大数据研究。

参考文献:

[1] Zhang P, Tian X. Recurrent neck lesions secondary to pyriform sinus fistula[J]. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2016, 273(3):735-739.

[2] Ishinaga H, Kobayashi M, Qtsu K, et al. Endoscopic electrocauterization of pyriform sinus fistula[J]. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2017, 274(11):3927-3931.

[3] Ahn D, Lee GJ, Sohn JH. Ultrasonographic characteristics of pyriform sinus fistulas involving the thyroid gland[J]. *J Ultrasound Med*, 2018, 37(11):2631-2636.

[4] Abbas PI, Roehm CE, Friedman EM, et al. Successful endoscopic ablation of a pyriform sinus fistula in a child: case report and literature review[J]. *Pediatr Surg Int*, 2016, 32(6):623-627.

[5] Kamide D, Tomifuji M, Maeda M, et al. Minimally invasive surgery for pyriform sinus fistula by transoral videolaryngoscopic surgery[J]. *A J Otolaryngol*, 2015, 36(4):601-605.

[6] Lachance S, Chadha NK. Systematic review of endoscopic obliteration techniques for managing congenital piriform fossa sinus tracts in children[J]. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2016, 154(2):241-246.

[7] Watson GJ, Nichani JR, Rothera MP, et al. Case series: endoscopic management of fourth branchial arch anomalies[J]. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2013, 77(5):766-769.

[8] Sun JY, Berg EE, McClay JE. Endoscopic cauterization of congenital pyriform fossa sinus tracts: an 18-year experience[J]. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*, 2014, 140(2):112-117.

[9] Nicoucar K, Giger R, Pope HG Jr, et al. Management of congenital fourth branchial arch anomalies: a review and analysis of published cases[J]. *J Pediatr Surg*, 2009, 44(7):1432-1439.

[10] 陈良嗣,梁璐,罗小宁,等. 支撑喉镜 CO₂ 激光烧灼治疗先天性梨状窝瘘的初步经验[J]. *中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2014, 49(7):582-585.

[11] Wang L, Sang J, Zhang Y, et al. Evaluation of endoscopic coblation treatment for obliteration of congenital pyriform sinus fistula[J]. *Acta Otolaryngol*, 2018, 138(6):574-578.

[12] 纪尧峰,赵振鹿,周钦,等. 低温等离子微创治疗儿童梨状窝瘘

[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2019, 33(5):82-84.

[13] Cha W, Cho SW, Hah JH, et al. Chemocauterization of the internal opening with trichloroacetic acid as first-line treatment for pyriform sinus fistula[J]. *Head Neck*, 2013, 35(3):431-435.

[14] 李万鹏,浦诗磊,刘晓君,等. 低温等离子射频消融治疗 37 例梨状窝瘘的临床分析[J]. *中国耳鼻咽喉科杂志*, 2019, 19(6):395-399.

[15] Wong PY, Moore A, Daya H. Management of third branchial pouch anomalies-An evolution of a minimally invasive technique[J]. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2014, 78(3):493-498.

[16] Mali VP, Prabhakaran K. Recurrent acute thyroid swellings because of pyriform sinus fistula[J]. *J Pediatr Surg*, 2008, 43(4):e27-30.

[17] James A, Stewart C, Warrick P, et al. Branchial sinus of the piriform fossa: Reappraisal of third and fourth branchial anomalies[J]. *Laryngoscope*, 2007, 117(11):1920-1924.

[18] Chen EY, Inglis AF, Ou H, et al. Endoscopic electrocauterization of pyriform fossa sinus tracts as definitive treatment[J]. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2009, 73(8):1151-1156.

[19] Miyauchi A, Tomoda C, Uruno T, et al. Computed tomography scan under a trumpet maneuver to demonstrate piriform sinus fistulae in patients with acute suppurative thyroiditis[J]. *Thyroid*, 2005, 15(12):1409-1413.

[20] Haitao Z, Xianmin X, Shan Z, et al. Diagnosis and management of pyriform sinus cyst in neonates: 16-year experience at a single center[J]. *J Pediatr Surg*, 2017, 52(12):1989-1993.

[21] Huang YC, Peng SF, Hsu WC. KTP laser assisted endoscopic tissue fibrin glue biocauterization for congenital pyriform sinus fistula in children[J]. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2016, 85:115-119.

[22] Jordan JA, Graves JE, Manning SC, et al. Endoscopic cauterization for treatment of fourth branchial cleft sinuses[J]. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*, 1998, 124(9):1021-1024.

[23] 田家军,吕正华,叶舜,等. 支撑喉镜下梨状窝内瘘口化学烧灼加缝合封闭术的疗效观察[J]. *中华解剖与临床杂志*, 2017, 22(2):144-147.

(收稿日期:2020-02-23)

本文引用格式:陈伟,倪坤,顾美珍,等. 显微支撑喉镜下低温等离子微创治疗儿童先天性梨状窝瘘[J]. *中国耳鼻咽喉颅底外科杂志*, 2020, 26(5):554-558. DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202005016

Cite this article as: CHEN Wei, NI Kun, GU Meizhen, et al. Minimally invasive treatment of congenital pyriform sinus fistula in children by low temperature plasma under microscopic laryngoscope[J]. *Chin J Otorhinolaryngol Skull Base Surg*, 2020, 26(5):554-558. DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202005016