

论 著

不典型先天性梨状窝瘘CT、MRI征象及误诊分析*

彭丹丹¹ 刘红军^{2,*} 欧阳子健¹
罗鹏飞¹ 林 彬¹ 尹 华¹

1.南宁市第二人民医院放射科

(广西 南宁 530031)

2.广东省人民医院/广东省医学科学院
放射科 (广东 广州 510080)

【摘要】目的 探讨先天性梨状窝瘘(CPSF)的不典型CT、MRI表现,分析其误诊原因,提高对不典型征象的认识。**方法** 回顾性分析41例影像表现不典型CPSF患者临床及影像学资料并初步分型。**结果** 41例患者中,CPSF位于左侧37例、右侧4例,均未见窦道或瘘管形成。根据CT、MRI表现可大致分为4型,包括颈部蜂窝织炎型17例(41.5%)、甲状腺结节型10例(24.4%)、梨状窝不对称型8例(19.5%)、颈部/纵隔囊性肿块型6例(14.6%)。**结论** CPSF的不典型影像学表现多样,术前容易误诊漏诊,必须紧密结合临床综合诊断;术前初步分型有助于临床治疗时机及方式的选择。

【关键词】 不典型;先天性梨状窝瘘;
计算机断层成像;磁共振成像

【中图分类号】 R445.3; R445.2

【文献标识码】 A

【基金项目】 广西壮族自治区卫生健康委自筹经费
科研课题(Z-A20230225)

DOI:10.3969/j.issn.1672-5131.2025.03.014

Analysis of CT and MRI Manifestations and Misdiagnosis of Atypical Congenital Pyriform Sinus Fistula*

PENG Dan-dan¹, LIU Hong-jun^{2,*}, OU YANG Zi-jian¹, LUO Peng-fei¹, LIN Bin¹, YIN Hua¹.

1.Department of Radiology, the Second People's Hospital of Nanning, Nanning 530031, Guangxi Zhuang Autonomous Region, China

2.Department of Radiology, Guangdong Provincial People's Hospital, Guangdong Academy of Medical Sciences, Guangzhou 510080, Guangdong Province, China

ABSTRACT

Objective To explore the CT and MRI characteristics of atypical congenital pyriform sinus fistula(CPSF),analyze the causes of misdiagnosis and improve the understanding of atypical manifestations. **Methods** The clinical and imaging data of 41 cases with atypical CPSF were retrospectively analyzed and preliminarily classified. **Results** Of the 41 patients, CPSF was located on the left side in 37 cases and on the right in 4 cases.No sinus tract or fistula was observed in all patients.According to CT and MRI findings, CPSF was roughly divided into 4 types, including 17 cases of cervical cellulitis type (41.46%), 10 cases of thyroid nodule type (24.39%), 8 cases of pyriform fossa asymmetry type (19.51%), and 6 cases of cervical/mediastinal cystic mass type (14.63%). **Conclusion** The atypical imaging manifestations of CPSF are varied, and it is easy to be misdiagnosed before surgery. Comprehensive diagnosis must be closely integrated with clinical manifestations. Preoperative preliminary classification is helpful to choose the opportunity and method of clinical treatment.

Keywords: Atypical; Congenital pyriform Sinus Fistula; Computed Tomography; Magnetic Resonance Imaging

先天性梨状窝瘘(congenital pyriform sinus fistula, CPSF)是一种少见的先天性鳃裂畸形,主流学说认为是人体在胚胎发育过程中,由于第3或第4鳃囊(内胚层)与鳃裂(外胚层)闭锁不全,或出现异常穿破所致^[1]。常发生于左颈部,主要临床表现为颈部肿痛、感染等。部分患者就诊时因缺乏典型影像特征而误诊为其他病变,主要原因为瘘道细小不易观察、反复多次切开引流、抗生素长期使用等。关于影像表现不够典型的CPSF报道较少,临床医师认识不足,易与甲状舌管囊肿、颈部蜂窝织炎、甲状腺肿瘤等混淆,导致患者病情延误。本文回顾性分析41例不典型梨状窝瘘的CT、MRI表现并初步分型,以期加深对梨状窝瘘不典型征象的认知,为临床治疗时机及方式的选择提供参考。

1 资料与方法

1.1 一般资料 回顾性分析2018年1月至2023年10月在广东省人民医院经手术或喉镜证实且影像学表现为不典型CPSF的41例患者资料。男21例,女20例;年龄5天~49岁,中位年龄6岁,病程最长为20余年。临床症状包括颈部肿胀、疼痛或活动受限、颈前皮肤瘘口流脓、发热等。41例病例中,1例行CT平扫,26例行CT平扫及增强扫描,13例行MRI平扫及增强扫描,1例先后行CT、MRI平扫及增强扫描。

1.2 方法

1.2.1 CT检查 采用Light Speed VCT(GE Medical systems,Milwaukee,Wis,USA)及Philips Ingenuity CT(Philips Healthcare,Cleveland,Ohio,USA)扫描仪,范围由口咽至胸骨上窝。扫描参数:管电压120 kV,管电流180~200 mA,层厚5.00 mm,重组层厚1.25 mm。增强扫描对比剂采用碘普罗胺注射液(370 mg I/mL),流率1.5~3.5 mL/s,以高压注射器经肘前静脉注射1.0~1.5 mL/kg,注射对比剂后35 s启动扫描。

1.2.2 MRI检查 采用Philips Ingenia 3.0T MRI扫描仪。扫描前对不能有效配合的患儿予10%水合氯醛口服镇静。采用头颈相控阵线圈。扫描参数:层厚3.0~5.0 mm,层间距1.0 mm,FOV 240 mm×240 mm,矩阵512×512。扫描序列包括:轴位T1WI、T2WI及脂肪抑制T2WI,冠状位脂肪抑制T2WI,冠、矢状位T1WI。增强扫描对比剂采用Gd-DTPA,流率1~2 mL/s,经肘前静脉注射0.1 mmol/kg后行轴位、冠状位及矢状位T1WI扫描。

1.3 图像分析 所有图像由2名高年资放射科诊断医师进行双盲阅片及诊断分析,观察内容包括梨状窝形态、有无窦道/瘘管、甲状腺形态、甲状腺密度/信号、有无颈部包块、强化特征、邻近环甲间隙有无增宽、有无颈部淋巴结肿大等,最后经讨论达成一致。

2 结 果

2.1 发生部位 41例均为单侧病变,37例位于左侧,4例位于右侧,左侧病变占90.2%。

2.2 CT、MRI表现及分型 41例均未见明确窦道或瘘管显示。笔者根据影像特征将不典型CPSF大致分为4型:颈部蜂窝织炎型17例(41.5%)、甲状腺结节型10例(24.4%)、梨状窝不对称型8例(19.5%)、颈部/纵隔囊性肿块型6例(14.6%)。

2.2.1 颈部蜂窝织炎型 17例表现为颈部脓肿或渗出,其中13例伴颈部淋巴结肿大。4例(3

【第一作者】 彭丹丹,女,主治医师,主要研究方向:头颈、胸部疾病影像诊断。E-mail: 229254674@qq.com

【通讯作者】 刘红军,男,副主任医师,主要研究方向:头颈、中枢神经系统疾病影像诊断。E-mail: lhj0152@126.com

例左侧, 1例右侧)表现为颈部皮下/肌间隙不规则片状、条索状稍低密度或T1WI稍低、T2WI及脂肪抑制序列高信号影, 病变范围相对局限, 甲状腺未见受累, 同侧环甲间隙未见增宽, 2例同侧梨状窝未见变浅, 均仅诊断为单纯颈部感染。13例(6例左侧, 1例右侧, 6例颈前正中区)表现为颈部脓肿(图1A), 增强扫描脓肿壁明显环形强化, 3例向咽后间隙延伸, 8例同侧梨状窝未见变浅(图1B), 4例同侧甲状腺上极局部缺损, 1例甲状腺弥漫性密度减低; 其中2例左颈部较大脓肿误诊为淋巴结结核, 2例颈前正中区病变误诊为甲状舌管囊肿, 另1例颈前正中区病变累及甲状腺者误诊为急性弥漫化脓性甲状腺炎, 其余8例病变仅诊断为单纯颈部脓肿。

2.2.2 甲状腺结节型 10例表现为甲状腺一侧叶内类圆形异常密度/信号结节影(图2), 9例位于左侧, 1例位于右侧, 边缘均未见明确包膜或囊壁形成。病灶最大径为0.6cm~4.2cm, 平均为2.0cm。其中5例病变局限于甲状腺内, 边缘清楚; 5例病变突破甲状腺包膜, 边缘模糊; 8例密度/信号不均匀, 其中1例内部见轮辐状低信号; 5例同侧梨状窝变浅; 5例合并周围软组织肿胀渗出; 增强扫描10例病变均出现不同程度强化; 6例合并颈部淋巴结肿大。

术前误诊为结节性甲状腺肿或甲状腺腺瘤。

2.2.3 梨状窝不对称型 8例均处于炎症静止期, 主要表现为左侧梨状窝变浅或消失, 而无甲状腺及软组织受累(图3); 其中1例甲状腺左叶内侧间隙见小气体影, 1例合并左侧环甲间隙增宽及颈部淋巴结轻度肿大。术前3例诊断为正常, 5例仅诊断左侧梨状窝变浅, 未能明确提示CPSF。

2.2.4 颈部/纵隔囊性肿块型 6例表现为左侧颈部/纵隔巨大囊性肿块(图4), 病灶最大径为2.9cm~8.2cm, 平均为5.4cm, 上至下颌骨水平, 下达中纵隔, 边缘清楚, 囊壁厚薄不均, 病灶内见小气泡影, 与甲状腺左叶关系密切, 左侧梨状窝受压变窄, 气管受压变窄并向右侧推移, 3例向下延伸至上、中纵隔, 3例向右延伸至咽后间隙, 2例包块内见多个脓腔。其中1例行CT平扫, 囊内容物呈稍低密度影, 囊内可见多发线样分隔, 术前误诊为淋巴管瘤; 1例行CT平扫及增强扫描, 囊壁明显强化, 术前诊断为鳃裂囊肿并感染; 4例行MRI平扫及增强扫描, T1WI呈低信号, T2WI及脂肪抑制序列呈高信号, 增强扫描囊壁明显强化, 囊内容物未见强化, 术前均诊断为囊性肿块并感染。

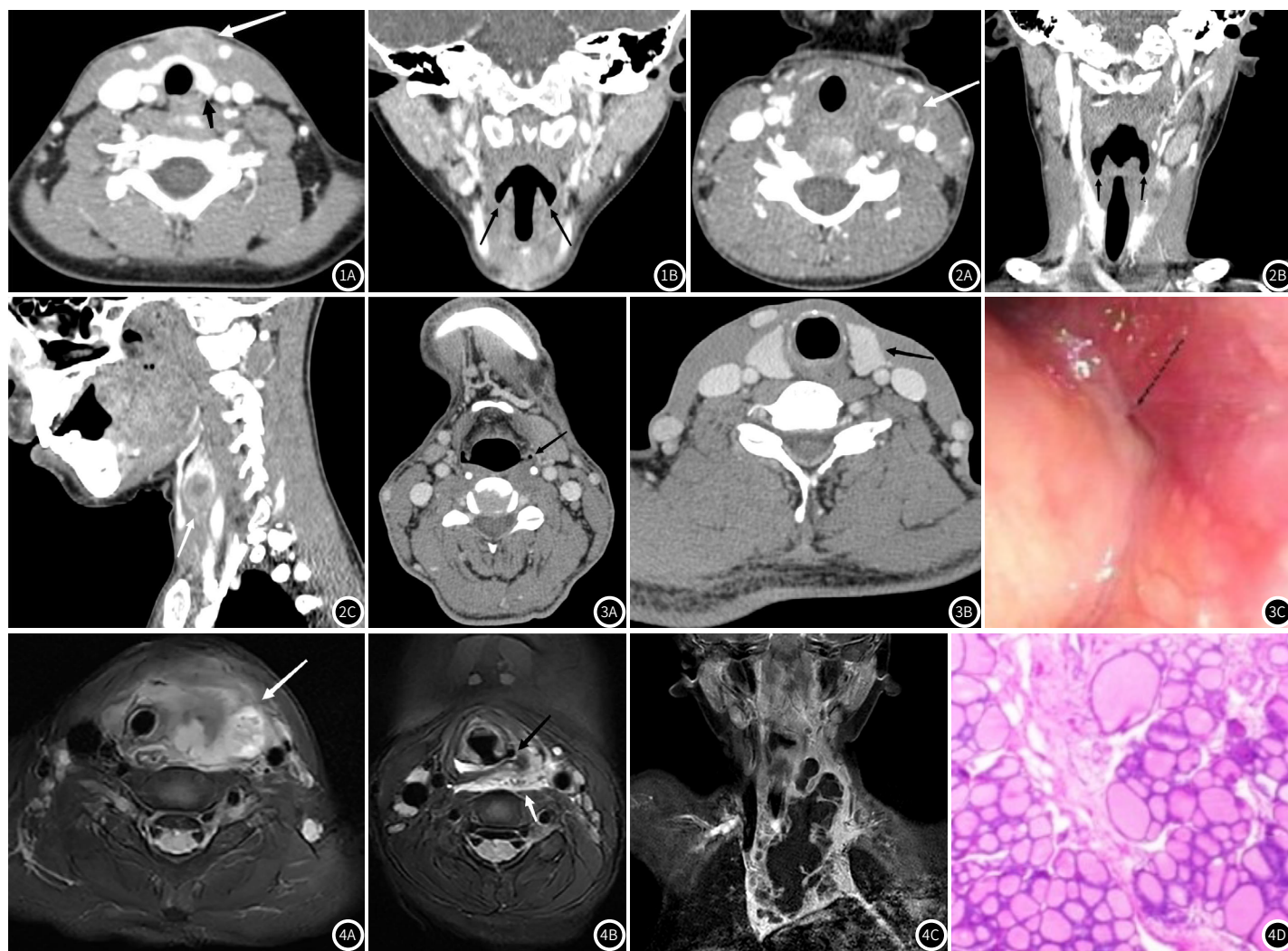


图1A-图1B 女, 4岁, 反复颈前肿痛1月余, 误诊为甲状舌管囊肿伴感染, 为颈部蜂窝织炎型。图1A. CT增强轴位示颈前正中区(甲状软骨水平以下)不规则团片状明显强化灶(白箭), 甲状腺未见受累(黑箭); 1B. CT增强冠状位示双侧梨状窝对称(黑箭), 未见变浅或消失。

图2A-图2C 女, 7岁, 发现左颈部肿物7年, 颈部疼痛伴发热1周, 误诊为甲状腺腺瘤, 为甲状腺结节型。CT增强轴位(图2A)、冠状位(图2B)及矢状位(图2C)示甲状腺左叶不均匀明显强化结节(白箭)并紧贴甲状腺内缘, 邻近软组织稍肿胀, 左侧梨状窝存在(黑箭)。

图3A-图3C 男, 49岁, 反复颈部脓肿20余年并曾行切开引流及消炎处理, 为梨状窝不对称型。图3A. CT增强轴位示左侧梨状窝变浅(黑箭); 图3B. CT增强轴位示甲状腺未见受累(黑箭), 周围软组织未见肿胀; 图3C. 喉镜发现左侧梨状窝瘘口。

图4A-图4D 男, 2岁, 胎儿期发现左颈部肿物, 发热1周伴左颈部肿胀3天, 为颈部/纵隔囊性肿块型。图4A、4B. MRI脂肪抑制T2WI序列示左颈部脓肿(长白箭)并延伸至咽后间隙(短白箭), 脓肿壁为等信号, 脓液为高信号, 累及甲状腺左叶, 左侧梨状窝变浅(黑箭), 气管受压向右推移; 图4C. MRI增强冠状位示肿块边缘不均匀明显强化, 中央无强化区为脓液, 病变向下延伸至上纵隔; 图4D. 术后病理图示左侧梨状窝瘘管壁组织伴周围少许分化成熟甲状腺组织(HE, $\times 20$)。

3 讨论

CPSF是在胚胎发育的第4~7周,鳃囊及鳃裂发育异常所致导致的一种先天性鳃裂畸形,近年有文献报道,在所有鳃裂畸形中,CPSF占比高达56.2%^[2],发病率呈上升趋势。多于儿童时期发病,且绝大部分发生于左侧^[3],本组41例患者90.2%发生在左侧,与文献报道相符。疾病发生过程中,由于瘻管细小且走行千变万化、瘻管黏连或遭受破坏、炎症范围大等因素干扰,并非所有患者都能看到瘻管显示。有文献报道,CT对于瘻管的显示率为13.6%^[4],MRI为28.1%^[5]。因此,对于CPSF中出现的一些不典型影像特征,如能做到正确识别则有助于减少误诊和漏诊率,帮助临床医生提高术前诊断水平。

3.1 各型CPSF的误诊原因分析 颈部蜂窝织炎型为本组病例最多,均处于炎症感染期,脓肿及炎性渗出可穿透肌层延伸至皮下。文献报道^[4],CPSF常常合并同侧甲状腺炎,因此影像学发现甲状腺炎可能是CPSF的有力证据。本组有12例因炎症范围局限或居中,且大部分甲状腺未见受累,术前仅诊断为单纯颈部感染或脓肿,诊断CPSF存在一定难度。2例颈前区脓肿误诊为甲状舌管囊肿并感染,误诊原因为颈前正中区并非CPSF感染的好发部位,容易先入为主考虑甲状舌管囊肿,但该病灶整体位置偏下,位于甲状软骨水平下方,而非舌骨与甲状软骨之间,其中1例脓肿累及甲状腺左叶则更应优先考虑CPSF。2例左颈深部脓肿增强扫描可见多个环形强化,与淋巴结结核环形强化类似,导致误诊,但仔细观察病灶由左侧环甲关节周围向下延伸,与同侧梨状窝关系密切。1例右侧CPSF表现为颈前区脓肿累及甲状腺,并以右叶受累为主,但右侧梨状窝无异常改变,容易误诊为单纯甲状腺炎,当发现甲状腺炎时需要想到CPSF的可能。

甲状腺结节型表现为甲状腺侧叶内异常密度或信号影,其原因较少的炎性渗出物自梨状窝水平下行后止于甲状腺内,加上甲状腺纤维囊限制,炎性渗出物在甲状腺内浓聚,通常体积较小,术前容易误诊为结节性甲状腺肿或甲状腺腺瘤。理论上,儿童甲状腺因含碘量高、血流及淋巴引流丰富、包膜完整,极少发生非特异性炎症^[6]。张琦等^[7]指出CPSF与甲状腺关系密切,尤其当儿童出现甲状腺肿块时应高度警惕梨状窝瘻的可能。本组9例行CT扫描,结节样病变均紧贴于同侧甲状腺内缘,且部分甲状腺内侧软组织较对侧肿胀、同侧梨状窝变浅,CT扫描容易忽视,可通过调节窗宽窗位观察,如能发现这些特征,则有助于提示甲状腺内病变来源于邻近软组织渗出;1例行MRI扫描,病灶内部出现轮辐状低信号影,考虑可能与炎性物滞留时间较长导致肉芽组织增生有关^[8]。

梨状窝不对称型仅表现为一侧梨状窝变浅或消失,提示病程处于炎症静止期,因临床工作中常发现梨状窝不对称现象也可出现在正常人群中^[9],对于此型患者容易误认为正常表现。本组3例诊断为正常,其主要原因在于未能对梨状窝形态仔细观察;4例仅提示一侧梨状窝变浅,但由于甲状腺未见异常改变,阳性征象较少,对于CPSF的诊断存在一定难度。文献^[10]报道,对于炎症静止期患者,可通过下咽造影间断、反复观察以降低漏诊率,但对于不配合的幼儿及瘻道细小的患者仍可能存在检查阴性的情况,最终仍需结合临床病史综合诊断。

颈部/纵隔囊性肿块型好发于新生儿,本组3例为新生儿,其余3例为婴幼儿但产检时即发现,与文献报道相符^[11]。肿块较大时可压迫邻近软组织及气管,甚至向下延伸进入纵隔,瘻道或瘻管的显示率极低,CT、MRI仅限于提示颈部包块并感染,如脓肿

内出现多个脓腔易误诊为较常见的淋巴管囊肿,导致颈部包块反复切开引流却迁延不愈。对于此类患者,需观察病灶与甲状腺关系及是否出现同侧甲状腺炎^[12],本组6例均出现甲状腺密度、信号的异常或形态失常,可对CPSF的诊断提供重要价值。

3.2 鉴别诊断 CPSF需与以下疾病相鉴别。(1)甲状舌管囊肿并感染:多位于颈前正中线舌骨附近,位置相对CPSF所致的颈部脓肿更高;(2)淋巴管畸形并感染:多房囊状肿块,可沿疏松组织间隙塑形性生长^[13];(3)单纯颈部蜂窝织炎:儿童多由蚊虫叮咬或外部损伤引起,成人多为牙源性、腺源性感染等扩散导致,炎症范围更广泛,可结合病史鉴别。(4)淋巴结结核:多为环形强化,部分可相互融合成团,干酪样坏死与脓肿可通过DWI进一步鉴别。(5)甲状腺结节:大多边缘光整,强化程度与正常甲状腺接近,无同侧梨状窝变浅及邻近软组织渗出性病变。

综上所述,CPSF的不典型CT、MRI表现多样,容易误诊为其他疾病而延误治疗。梨状窝不对称型必须结合临床病史综合诊断;其他类型不仅要观察主体病灶形态,还要多方位仔细寻找邻近组织结构有无细微的异常表现,尤其注重同侧甲状腺形态、密度或信号有无异常改变。而影像学的初步分型有助于指导临床治疗方案的选择。

参考文献

- [1]李晚艳,刘大波,陈良嗣,等.儿童先天性梨状窝瘻诊断与治疗临床实践指南[J].临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2020,34(12):1060-1064.
- [2]Li W P, Xu H M, Zhao L M, et al.Branchial anomalies in children:a report of 105 surgical cases[J].Int J Pediatr Otorhinolaryngol,2018,104(1):14-18.
- [3]Zhai A G,Peng X H,Guo Y.Multimodal imaging of congenital pyriform fossa fistula in children[J].Frontiers in pediatrics,2023,11(3):1089241-1089241.
- [4]张杰,刘红军,马小敏,等.先天性梨状窝瘻的X线钡造影与CT对比研究[J].实用放射学杂志,2019,35(11):1743-1746.
- [5]梁璐,陈良嗣,周正根,等.先天性梨状窝瘻的影像特征[J].中华放射学杂志,2016,50(3):196-200.
- [6]Park N H,Park H J,Park C S,et al.The emerging echogenic tract sign of pyriform sinus fistula:an early indicator in the recovery stage of acute suppurative thyroiditis[J].AJNR.American Journal of Neuroradiology,2011,32(3):E44-E46.
- [7]张琦,宋修峰,张振,等.MRI在感染期儿童先天性梨状窝瘻诊断中的价值[J].临床放射学杂志,2020,39(5):966-968.
- [8]梁树生,莫永灿.CT在甲状腺炎性结节与甲状腺癌鉴别诊断中的价值[J].中国CT和MRI杂志,2018,16(11):36-40.
- [9]姚亮凤,蓝文富,田敏,等.多排螺旋CT在小儿先天性梨状窝瘻的应用[J].实用放射学杂志,2023,39(7):1152-1154.
- [10]Hosokawa T,Yamada Y,Takahashi H,et al.Optimal timing of the first barium swallow examination for diagnosis of pyriform sinus fistula[J].AJR.American Journal of Roentgenology,2018,211(5):1122-1127.
- [11]Li L,Zhao D J H,Yao T Y,et al.Imaging findings in neonates with congenital pyriform sinus fistula:a retrospective study of 45 cases[J].Frontiers in Pediatrics,2021,9(11):721128-721128.
- [12]徐守军,干芸根,杨春兰,等.小儿先天性梨状窝瘻影像学表现[J].中国医学影像技术,2021,37(4):517-521.
- [13]林雁捷,郑晓林,王忠,等.小儿颈部淋巴管瘤的MSCT及MRI表现及分析[J].中国CT和MRI杂志,2018,16(5):43-46,2.

(收稿日期:2024-03-01)

(校对编辑:姚丽娜)