

· 头颈疾病 ·

41例先天性甲状舌管囊肿或瘻管临床分析

1. 香港大学深圳医院 (广东 深圳 518028)

2. 深圳市龙岗区耳鼻咽喉医院 (广东 深圳 518172)

杨名保¹ 赵海亮² 曾宪海² 曾晓霞²

【摘要】目的 探讨先天性甲状舌管囊肿或瘻管的病因、临床表现、诊断及治疗方法,以提高对其的诊治水平。方法 回顾性分析41例先天性甲状舌管囊肿或瘻管患者的临床资料。结果 术后随访3月-18月,平均6.3月。37例采用经典的Sistrunk术式,2例出现复发,再次行扩大的Sistrunk术式,其余患者术后均一期愈合,随访期间无复发。3例直接行扩大的Sistrunk术式,1例舌根部囊肿患者,采用支撑喉镜下激光囊肿切除术和颈外径路Sistrunk术,术后均无复发。结论 术前明确囊肿或瘻管的位置和走行是先天性甲状舌管囊肿或瘻管诊断和鉴别诊断的重要依据,经典的Sistrunk术式是其治疗的有效方法。

【关键词】甲状舌管; 囊肿或瘻管; 先天性; Sistrunk术式; 治疗

【中图分类号】R781.5+7

【文献标识码】A

DOI: 10.3969/j.issn.1009-3257.2017.06.001

Clinical Analysis of Congenital Thyroglossal Duct Cyst or Fistula in 41 Patients

YANG Ming-bao, ZHAO Hai-liang, ZENG Xian-hai, et al., Shenzhen Institute of Otolaryngology, Hospital of Otolaryngology, Longgang District of Shenzhen City, Shenzhen 518172, Guangdong Province, China

【Abstract】Objective To study the etiology, clinical manifestation and the diagnosis and treatment of congenital thyroglossal duct cyst or fistula in order to improve the level of diagnosis and treatment. Methods The clinical data of 41 cases who were diagnosed as thyroglossal duct cyst or fistula were retrospectively studied. Results Postoperative follow-up of 3 months to 18 months, an average of 6.3 months. 37 cases received Sistrunk operation, with 2 cases relapsed and received modified Sistrunk operation, all of them had primary healing. 3 cases direct received modified Sistrunk operation, 1 case of thyroglossal cyst in the base of tongue with support laryngoscope under laser resection of the cyst and was completely removed with transcervical Sistrunk procedure. Conclusion The important basis of diagnosis and differential diagnosis in congenital thyroglossal duct cyst or fistula is preoperative definite its location and direction, the classic Sistrunk operation is the effective method of treatment.

【Key words】Thyroglossal Duct Cyst or Fistula; Congenital; Sistrunk Operation; Treatment

先天性甲状舌管囊肿或瘻管(Thyroglossal duct cyst, TDC; or Thyroglossal Fistula, TF)是颈部最常见的一种先天畸形之一,其占颈部先天性肿物的70%,因其常位于舌盲孔至胸骨上切迹之间的颈中线上,故又称颈中线囊肿或瘻管,但约有10%~24%的患者囊肿或瘻管可稍偏向一侧,其中以左侧稍常见^[1-2]。本文回顾性分析我院2010年10月~2014年12月收治的41例术后经病理检查证实为先天性甲状舌管囊肿或瘻管患者的临床资料,现分析报道如下。

1 资料与方法

1.1 临床资料 所有病例来自我院2010年10

月~2014年12月收治的41例术后经病理检查证实为先天性甲状舌管囊肿或瘻管的患者,其中男27例,女14例,年龄14岁~56岁,平均28.3岁。临床表现为颈前单纯囊肿30例(73.2%),单纯瘻管2例(4.9%),囊肿首次术后复发或感染后合并瘻管8例(19.5%),舌根部囊肿1例(2.4%)。囊肿或瘻管病变位于颈部正中者33例(80.5%),中线偏右侧者2例(4.9%),中线偏左侧者6例(14.7%);甲状舌管囊肿或瘻管与舌骨相连或相毗邻34例(82.9%),位于舌骨上与舌底之间4例(9.8%),位于舌骨下与甲状腺锥状叶之间2例(4.9%),位于舌根部囊肿1例(2.4%)。病程7天~20年,平均6.3个月。

1.2 手术方法

作者简介:杨名保,男,硕士研究生,副主任医师,主要从事耳鼻咽喉科临床工作

通讯作者:杨名保

1.2.1 对于32例单纯囊肿或瘘管患者采用经典的Sistrunk术式:所有患者经口气管插管全麻后,在肿物表面作一与舌骨平行的横切口,长约5cm,逐层切开皮肤、皮下组织,沿肿物表面分离,于甲状软骨板处横断侧带状肌,上至舌骨水平,下至甲状腺上极,充分暴露并逐渐向四周游离肿物,将舌骨体附着肌肉游离后,于左、右舌骨小角处剪断舌骨体,连同部分舌骨体完整切除肿物。如见肿物上极或下极有瘘管通向甲状腺或舌盲孔方向,沿瘘管向下分离至甲状腺上极水平,向上分离至舌盲孔处,切断并缝扎,在根部行荷包缝合。

1.2.2 对于8例囊肿首次术后复发或感染后合并瘘管患者,其中5例行经典的Sistrunk术式后出现2例复发,再次行扩大的Sistrunk术式(又称颈中线清扫术),3例直接行扩大的Sistrunk术式:切除范围两侧是胸锁乳突肌内侧,上界到舌根,下界为甲状腺,切除带状肌周围的脂肪组织及淋巴结、感染病灶及与之粘连的胸锁乳突肌之间的软组织、甲状腺与舌骨之间的颈前带状肌、残留舌骨、舌骨以上残留瘘管、以舌盲孔为中心的部分舌底组织,至舌盲孔时由助手经口向前顶压舌盲孔处,使舌根突向术腔利于末端瘘管的显露和完整切除。一般剥离至见到白色膜时,表示已至口底粘膜下,在此处结扎切断瘘管,不必进入咽腔。切除过程中如与咽腔相通,需内翻缝合瘘口,封闭咽腔^[3]。

1.2.3 对于1例舌根部囊肿患者,手术采用支撑喉镜下激光囊肿切除术和颈外径路Sistrunk术式:切除甲状舌管囊肿、管道、甲舌管周围部分舌根肌肉组织,以及与其相连的舌骨体,缝合舌根与会厌之切缘,封闭咽腔,分层加固缝合肌层、皮下组织和皮肤^[4]。

2 结 果

术后所有患者标本送病理检查均证实为甲状舌管囊肿或瘘管,未发现恶性病变。随访3月~18月,平均6.3月。32例单纯囊肿或瘘管患者采用经典的Sistrunk术式,术后均一期愈合,随访期间无复发。8例囊肿首次术后复发或感染后合并瘘管患者,其中5例行经典的Sistrunk术式后出现2例复发,再次行扩大的Sistrunk术式,3例直接行扩大的Sistrunk术式,术后均未再复发。1例舌根部囊肿患者,采用支撑喉镜下激光囊肿切除术和颈外径路Sistrunk术,术

后喉镜检查见舌根肿物无复发。

3 讨 论

His最早于1891年从胚胎学角度解释了甲状舌管囊肿或瘘管的发生机制^[5],胚胎期甲状腺始基在向尾侧下移过程中形成一条与始基相连的细管,叫甲状舌管,正常约有7%的成人存在甲状舌管残体^[2];若在胚胎第6~8周甲状舌管未消失或完全消失,则可形成甲状舌管囊肿或瘘管。甲状舌管退化时,左右两侧软骨性舌骨在中线融合,未萎缩的甲状舌管可位于舌骨腹侧、背侧或包被在舌骨之中。因此,约60%的甲状舌管囊肿或瘘管与舌骨相连或相毗邻,另有24%的囊肿或瘘管位于舌骨上与舌底之间,13%位于舌骨下与甲状腺锥状叶之间,3%位于舌内形成舌甲状舌管囊肿^[1-2,6],这与本文报道的基本一致。

临床上甲状舌管囊肿一般较瘘管多见,Allard等^[6]报道32.6%的患者表现为瘘管,Ren等^[7]报道11.3%表现为瘘管,本文报道的为24.4%(10/41例)。甲状舌管瘘管可为先天性和继发于囊肿破溃或切开引流后。临床约1/3甲状舌管囊肿患者并发囊肿感染,约1/4患者因囊肿自发破溃或感染切开引流而形成颈部皮下和舌底相的通窦道或瘘管,但一般不经舌盲孔与咽腔相通,此时往往错误的诊断为先天性甲状舌管瘘管,临床真正的先天性甲状舌管瘘管少有报道^[1]。真正的先天性甲状舌管瘘管一般无颈部囊肿或感染,其外瘘口多位于舌骨与胸骨上切迹之间的颈中线或稍偏向一侧,瘘管内口为舌盲孔,常有清亮分泌物自外瘘口自行溢出,咀嚼、吞咽或挤压时更明显,这可能与瘘管内压力改变或存在一些分泌腺体细胞相关^[8]。自外瘘口注入亚甲蓝,喉镜下见舌盲孔处蓝色液体溢出;或经外瘘口注入造影剂后X线或CT拍片检查有助于明确诊断^[1,9]。术后组织病理学检查为先天性甲状舌管囊肿或瘘管确诊依据,主要表现为被覆假复层纤毛柱状上皮细胞或鳞状上皮细胞的管腔,约11%的患者囊肿内含甲状腺上皮组织^[8,10]。

甲状舌管囊肿应与异位甲状腺、会厌囊肿、腮裂囊肿、淋巴管瘤、颈下淋巴结炎等相鉴别,另有1%~2%的囊肿内含异位甲状腺组织,1%的囊肿有恶变可能^[1-2],因此术前颈部B超、CT、MRI、甲状腺核素扫描、细针穿刺细胞活检有助于诊断和鉴别诊断^[8]。先天性甲状舌管瘘管应与先天性颈侧鳃源性瘘管(Congenital lateral cervical fistula)和

先天性颈正中裂(Congenital midline cervical cleft, CMCC)相鉴别。鳃源性瘘管外瘘口一般位于颈侧,第1鳃裂瘘管外瘘口位于乳突尖前下方、耳后、下颌骨升支后方(I型)或下颌角附近(II型),第2、3、4鳃裂瘘管外瘘口位于胸锁乳突肌前缘中、下1/3相交处,而第1、2、3、4鳃裂瘘管内瘘口分别位于外耳道、扁桃体窝、梨状窝开口处和食道入口处,术前明确颈部瘘管内、外瘘口位置可相鉴别。但临床也有可能出现先天性甲状舌管瘘管与先天性颈侧鳃源性瘘管并存的情况^[11]。先天性颈正中裂也可表现为颈中线的瘘管,临床罕见,目前文献报道不足百例,其发病机制绝大多数学者认为与两侧鳃弓在中线的融合不全有关,主要临床特征是发生于颈部腹侧中线,在下颌骨及胸骨之间任意位置的纵行缺损,缺损的头侧可有皮肤突起结节,另一端有瘘管,以及缺损区皮下纤维组织条索或瘢痕;在组织学上,颈正中裂通常由角化不全的复层鳞状上皮构成,缺乏正常的皮肤附件^[12-13]。

甲状舌管囊肿或瘘管一般以手术治疗为主。最早的手术主要以单纯囊肿切除或囊肿感染切开和引流为主,术后复发率高达50%;1893年Schlange最先提出手术一并切除舌骨中段及囊肿或瘘管组织,使术后复发率降到20%;1920年Sistrunk在此基础上提出一并切除舌骨上肌群内通向舌盲孔的窦道组织,即经典的Sistrunk术式,使术后复发率进一步降到3%-4%,其认为切除舌骨体的长度为1/4英寸(约6mm)^[1, 8, 14]。在本组患者中经典的Sistrunk术式后有2例复发,复发率为5.4%(2/37例)。Horisawa等^[15]研究发现,在舌骨水平甲状舌管最远分支距正中线的距离是9.6mm,认为至少切除10mm长的舌骨中段才有利于彻底切除病灶。因此, Geller等^[14]常规切除10mm~15mm长的舌骨是比较合理的。对于Sistrunk术后复发或再感染的病例,1928年Sistrunk再次提出改良或扩大的Sistrunk术式,又称颈中线清扫术。一般对于首次手术未切除部分舌骨体、颈部囊肿或瘘管有反复感染或切开引流病史的患者术后容易复发,需要行扩大的Sistrunk术式,在本组5例经典的Sistrunk术后复发患者即属此种情况,对于初次手术或无感染者并不主张行扩大的Sistrunk术式,因为经典的Sistrunk术式复发率已相当低了^[3, 14]。在本组32例单纯囊肿或瘘管患者我们即行了经典的Sistrunk术式,术中完整切除颈部囊肿或瘘管组织及部分舌骨体,术后均一期愈合,随访期间未见复发。对于发生在舌根部的肿物术前行B超或

CT检查明确肿物与舌骨及舌盲孔的关系,仅凭间接喉镜或纤维喉镜检查容易误诊成会厌囊肿或舌根囊肿而施行支撑喉镜下激光囊肿切除术,这是导致患者术后复发的主要原因^[4]。术前如高度怀疑甲状舌管囊肿可能,可以先在支撑喉镜下行囊肿切除术,若术中发现囊肿非会厌或舌根囊肿,而是与舌盲孔相连,则应改为颈外径路行经典的Sistrunk术式,可有效防止术后复发。

参考文献

- [1] Madana J, Yolmo D, Saxena SK, et al. True thyroglossal fistula[J]. Laryngoscope, 2009, 119(12): 2345-2347.
- [2] Dedivitis RA, Camargo DL, Peixoto GL, et al. Thyroglossal duct: a review of 55 cases[J]. J Am Coll Surg, 2002, 194(3): 274-277.
- [3] 郭志强, 杜瀚, 周健, 等. 甲状舌管囊肿和瘘管术后复发的手术治疗[J]. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2008, 43(5): 383-384.
- [4] 李天成, 刘玉和, 王军, 等. 舌根部甲状舌管囊肿的诊断与治疗[J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科, 2008, 15(6): 353-355.
- [5] Horisawa M, Sasaki J, Niinomi N, et al. Thyroglossal duct remnant penetrating the hyoid bone—a case report[J]. J Pediatr Surg, 1998, 33(5): 725-726.
- [6] Allard RH. The thyroglossal cyst[J]. Head Neck Surg, 1982, 5(2): 134-146.
- [7] Ren W, Zhi K, Zhao L, et al. Presentations and management of thyroglossal duct cyst in children versus adults: a review of 106 cases[J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod, 2011, 111(2): e1-6.
- [8] Mondin V, Ferlito A, Muzzi E, et al. Thyroglossal duct cyst: personal experience and literature review[J]. Auris Nasus Larynx, 2008, 35(1): 11-25.
- [9] Ranga U, Aiyappan SK, Veeraiyan S. Computed tomography fistulography demonstrating thyroglossal fistula: a case report[J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol, 2012, 114(3): e48-50.
- [10] Shahin A, Burroughs FH, Kirby JP, et al. Thyroglossal duct cyst: a cytopathologic study of 26 cases[J]. Diagn Cytopathol, 2005, 33(6): 365-369.
- [11] Jaswal A, Jana AK, Sikder B, et al. Simultaneous complete branchial and thyroglossal fistula – a rare presentation[J]. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg, 2008, 60(1): 94-96.
- [12] Mirza B. Congenital midline cervical cleft[J]. APSP J Case Rep, 2013, 4(1): 9.
- [13] 赵利敏, 李晓艳. 先天性颈正中裂1例[J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科, 2012, 19(4): 224.
- [14] Geller KA, Cohen D, Koempel JA. Thyroglossal duct cyst and sinuses: a 20-year Los Angeles experience and lessons learned[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2014, 78(2): 264-267.
- [15] Horisawa M, Niinomi N, Ito T. What is the optimal depth for core-out toward the foramen cecum in a thyroglossal duct cyst operation[J]. J Pediatr Surg, 1992, 27(6): 710-713.