

DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202322396

· 论著 ·

颈外径路 Sistrunk 手术治疗成人复发性 舌甲状舌管囊肿的临床分析

张婷, 李化静, 曹亚莉, 姚小宝, 张少强

(西安交通大学第一附属医院耳鼻咽喉头颈外科, 陕西 西安 710061)

摘要: **目的** 探讨成人复发性舌甲状舌管囊肿(LTGDC)的临床特点、误诊原因及手术治疗。**方法** 回顾性分析2018年1月—2021年3月收治的6例反复复发的成年LTGDC患者,术前行甲状腺B超提示甲状腺位置并排除异位甲状腺,颈部CT检查明确肿物大小、部位及与舌骨的关系,咽喉部MRI明确肿物性质。手术均采用颈外径路Sistrunk手术。**结果** 6例患者曾误诊为会厌囊肿4例,舌根囊肿2例,均已行囊肿切除术,复发时间3周至1年。所有患者行颈外径路Sistrunk手术完整切除甲状舌管囊肿及瘻管,术后病理确诊为甲状舌管囊肿。术后随访1年以上无复发。**结论** 复发性舌根部或会厌间隙的囊性肿物应考虑LTGDC的可能性。所有患者术前均应行喉镜检查及颈部影像学检查以了解囊肿的形态、位置及其和舌骨的关系来选择手术方式。对于成人复发性LTGDC, Sistrunk手术可彻底切除囊肿减少复发。

关键词: 舌甲状舌管囊肿; Sistrunk手术; 甲状舌管囊肿; 误诊

中图分类号: R766.9

Sistrunk surgery outcomes of recurrent lingual thyroglossal duct cyst in adults

ZHANG Ting, LI Huajing, CAO Yali, YAO Xiaobao, ZHANG Shaoqiang

(Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, the First Affiliated Hospital of Xi'an Jiaotong University, Xi'an 710061, China)

Abstract: **Objective** To explore the clinical features, reasons of misdiagnosis and surgical treatment of recurrent lingual thyroglossal duct cyst (LTGDC) in adults. **Methods** Clinical data of 6 adult patients with recurrent LTGDC enrolled from January 2018 to March 2021 were analyzed retrospectively. All patients underwent ultrasound B examination to determine the location of the thyroid, computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) scans to evaluate the size, location and property of the mass, as well as the relationship between the mass and hyoid bone. Sistrunk operation were performed for all patients. **Results** Four patients were misdiagnosed as epiglottic cyst while the other two patients were misdiagnosed as cyst of the lingual root. All patients had previously received operation for one to three times. The interval between each surgery and the following recurrence ranged from 3 weeks to 1 year. Thyroglossal duct cyst was confirmed by postoperative pathology in all cases. Postoperative follow-up over one year revealed no recurrence. **Conclusion**

For the recurrent cyst located at the base of the tongue or in the preepiglottic space, LTGDC should be differentiated from the other cysts. Besides laryngoscopy, ultrasound B examination and CT scan should be performed to evaluate the morphology and position of the cyst and its relationship with the hyoid bone. Sistrunk surgery is the effective treatment for LTGDC to avoid the recurrence.

Keywords: Lingual thyroglossal duct cyst; Sistrunk surgery; Thyroglossal duct cyst; Misdiagnosis

甲状舌管囊肿(thyroglossal duct cyst, TGDC)是好发于幼儿和青少年的颈部先天性肿物,由于胚

胎发育时甲状舌管的残留所形成^[1],最常见位于舌骨平面与甲状软骨之间,发生在舌根部的称为舌甲

基金项目:陕西省自然科学基金项目(2019JQ-247, 2020JM-382)。

第一作者简介:张婷,女,博士,助理研究员,主治医师。Email:tingzh0724@126.com

状舌管囊肿(lingual thyroglossal duct cyst, LTGDC), 占比0.5%~8%^[2]。由于位于咽部,常被误诊为咽部囊肿,常规手术不易完整切除而导致复发。本文通过对我科收治曾误诊误治的6例成年复发性LTGDC的临床特征进行分析,探讨诊疗方法与疗效。

1 资料与方法

1.1 一般资料

选取2018年1—2021年3月于西安交通大学第一附属医院耳鼻咽喉头颈外科住院治疗的6例反复复发的成年LTGDC患者,其中男4例,女2例,年龄22~73岁,中位年龄39岁。临床症状主要表现为咽部异物感6例,吞咽不利2例,咳痰1例。曾在外院及我院误诊为会厌囊肿4例,舌根囊肿2例。1例既往行局麻直视下肿物切除2次,余5例既往行支撑喉镜下囊肿切除术1~3次,术后复发时间3周至1年。

1.2 辅助检查

术前患者均行纤维喉镜检查,可见囊性肿物位于舌根部、会厌谷,中线部位2例,左侧2例,右侧2例,肿物表面光滑,囊壁薄厚不等,部分囊液饱满的囊壁表面可见血管纹理(图1)。甲状腺B超提示甲状腺部位、大小等,颈部CT平扫水平位+矢状位检查可见边界清楚的类圆形低密度影,咽喉部MRI可见类圆形长T1长T2囊性占位影,信号均匀,呈液体信号影(图2)。

1.3 手术方式

所有患者均采用全麻下颈外径路Sistrunk手

术。在颈前正中舌骨水平行约4 cm横切口,切开皮肤及皮下各层,沿颈阔肌深面上下分离皮瓣,中线分离带状肌,向上暴露出舌骨,向下至甲状软骨板上极,分离附着于舌骨体的肌肉,切除舌骨体中部约2 cm,切开舌甲膜自会厌谷进入咽腔,暴露舌根与会厌谷,探查肿物,沿囊肿壁与周围组织分离。因患者均行多次手术,肿物多与舌根粘连,若粘连较重可用电凝切除部分舌根组织,完整切除肿物及可疑瘘管组织,基底部予以结扎。严密止血,冲洗术腔,黏膜对位缝合封闭咽腔,加固缝合肌层,放置负压引流管,缝合带状肌、颈阔肌、皮下组织,皮肤行纹饰美容皮内缝合。术后常规给予抗感染、补液治疗。

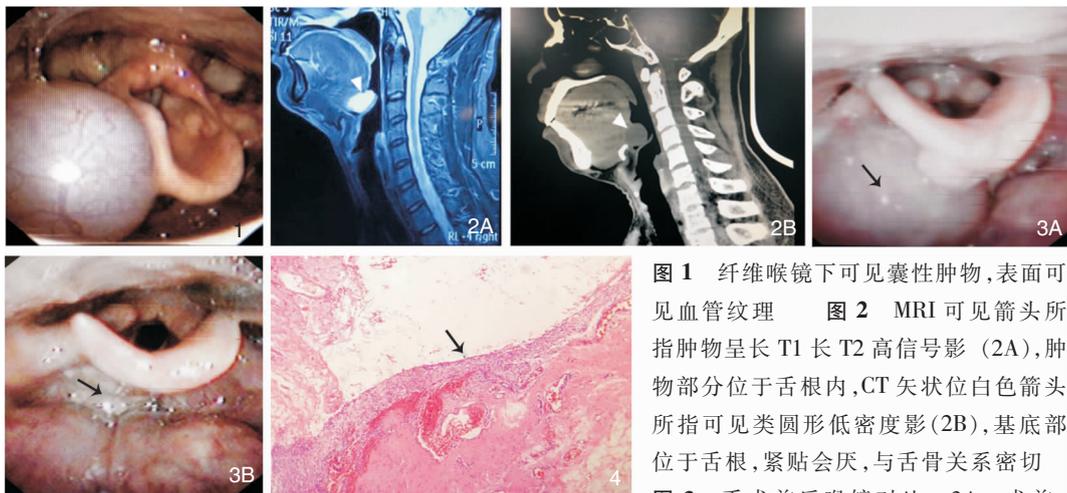
2 结果

所有患者手术顺利,术后无呼吸困难,均未行气管切开。6例术后均诉咽部异物感、咽痛。3例术后第2天起嘱冷流质饮食1周,3例给予鼻饲饮食7 d后复查喉镜(图3),咽部可见白膜、无明显出血后拔除胃管经口进食。术后病理检查均证实为TGDC,可见鳞状上皮及黏液(图4)。1例老年男性患者出院后术后2周出现咽痿、局部感染,予以每日清创换药及抗感染治疗,10 d后愈合。所有患者术后随访至今未见复发。

3 讨论

3.1 LTGDC的发生与临床症状

TGDC是颈部最常见的一种先天性疾病,也是



3B:术后1周术区可见白膜,箭头所指为病变部位
黏液腺体 (HE ×20)

图4 术后病理,箭头所指为鳞状上皮,下方可见

耳鼻咽喉科常见疾病,其形成与甲状舌管的胚胎发育异常有关^[3]。LTGDC 发病率低,幼儿较为多见,对部分患儿行咽部检查时可见位于舌根部中线附近的囊肿,大多为偶然检查中发现。较小的囊肿可无任何临床症状;囊肿较大时可压迫会厌,导致上呼吸道阻塞甚至窒息死亡^[4-5]。成人的临床症状不典型,最常见的为咽部异物感,还包括进食吞咽不利、哽噎感、睡眠打鼾或呼吸暂停等,若囊肿较大可能会出现发音含混、咬字不清晰,压迫会厌而出现呼吸困难,此外囊肿的出血或感染可能会导致突发的疼痛和气道梗阻症状。本组 6 例成年患者均有咽部异物感,2 例表现出吞咽不利,无呼吸困难、说话含混,1 例老年男性有咳痰,考虑合并慢性咽炎,与 LTGDC 无关。

3.2 LTGDC 的诊断与鉴别诊断

LTGDC 的临床症状不典型,有些患者只是偶然发现,仅凭体格检查和喉镜检查很容易造成漏诊与误诊,本组患者均曾在本院或外院误诊,最常被误诊为会厌囊肿,误诊之后手术切除不彻底而造成复发。故舌根部囊肿切除术后短期内复发患者应考虑 LTGDC 的可能。

TGDC 的诊断首选颈部超声,B 超可显示甲状软骨上舌骨后下方的液性暗区,从而了解肿物的位置、形态、大小、范围。但对于 LTGDC 的诊断来说,由于颈部无明显肿物,超声检查只能协助做出鉴别诊断,了解甲状腺组织位置及大小有无异常,以排除异位甲状腺^[6]。放射性核素检查也可对甲状腺显像而排除异位甲状腺,但由于超声检查较为经济、方便,故本组患者均选择超声检查。

舌根部囊肿的常用检查方法有压舌板直视检查、间接喉镜和纤维喉镜。秦凤花等^[7]报道了 44 例婴幼儿 LTGDC 中只有 1 例因体积巨大是经口压舌板发现。纤维喉镜直观、清晰,对于咽喉部病变有很高的诊断价值,临床中应用普遍。LTGDC 在喉镜下常表现为舌根或会厌谷的色稍灰白的圆形囊肿样物,也有不典型的非圆形。本组 1 例患者曾行 2 次局麻手术,喉镜下舌根区新生物非透明圆形,壁厚,无法窥见明显囊液。1 例位于舌根至会厌谷,非圆形,表面不光滑,多次手术导致周围淋巴组织增生,与会厌囊肿形态有差别,需仔细鉴别。与会厌囊肿相比,LTGDC 的囊壁相对偏厚,若形态饱满表面可见血管纹(图 1),囊肿大多为超半球体,范围更大,可压迫会厌导致会厌偏移,与舌根关系紧密无间隙,基底部分位于舌根。而会厌囊肿大多位于会厌舌面,半球形,囊壁较薄,部分位于会厌谷或会厌游离

缘,一般与舌根关系不紧密。本组患者在末次手术前均只行纤维喉镜而误诊为会厌囊肿或舌根囊肿,若囊肿复发,或囊肿形态与会厌囊肿有所区别,怀疑 LTGDC 可能时建议均行影像学检查。

本组患者术前行颈部 CT 和喉咽部 MRI,影像学检查可清晰的显示肿物的形态、大小、内部情况、及其与临近解剖结构的关系,对手术方式的确定具有重要的价值。CT 对于骨性结构显示较好,可了解肿物与舌骨的关系是否紧密,在手术方式的选择上有所帮助,尤其是矢状位能更好的看出囊肿和舌骨的关系(图 2),若关系紧密甚至是囊壁的一部分,提示甲状舌管穿过舌骨可能,若仅行口内手术摘除囊肿,可能会有残留而导致复发。但 CT 平扫检查对于软组织分辨率较低,若无法行 MRI 检查时可行增强 CT 检查,可见局限性囊肿,无明显增强。Soliman 等^[8]认为 MRI 对软组织的分辨率较好且无辐射,更倾向于 MRI 检查。典型的 MRI 表现为圆形、卵圆形或欠规则形的囊状占位影,其内信号均匀,呈液体信号影,常为长 T1 长 T2 高信号影。增强 MRI 病灶呈环状强化,环壁较厚且光滑规则,囊肿呈低信号影,病灶周围无异常。但 MRI 检查扫描时间较长,婴幼儿难以配合,临床工作中可根据情况进行选择不同的影像学检查。LTGDC 的确诊仍是以病理学诊断作为金标准^[9]。镜下通常可见非角化复层鳞状上皮,偶见立方或假复层纤毛状上皮,囊壁内可见黏液细胞、黏液腺。而会厌囊肿的囊壁或内衬柱状上皮或无内衬上皮。

3.3 LTGDC 的治疗

由于 LTGDC 可能因为上呼吸道感染或者囊肿内出血使囊肿快速增大,而导致气道梗阻甚至死亡,所以发现 LTGDC 后均建议手术切除。手术方式包括袋型切除、经口或内镜下切除还有经典的颈外径路 Sistrunk 手术。近年来随着手术器械的更新,经口内镜下或支撑喉镜下手术有了更多的选择,包括低温等离子射频消融、经口达芬奇机器人手术、CO₂ 激光切除、动力系统切除等^[10-11]。内镜下手术的优点包括颈部无痕、微创、术后反应轻,尤其对于婴幼儿。但由于内镜下手术一般仅切除囊壁,有的开放基底不够,不切除舌骨可能残留部分瘻管导致复发,复发率为 1.5% ~ 3%^[7,12]。近年来 TORS 手术开展的越来越多,Johnston 等^[13]报道了在 TORS 手术中经口完整切除囊肿及舌骨中央部分以减少复发可能。但由于达芬奇机器人设备昂贵,不适用于基层医院,开展例数较少仍需更多病例来观察效果。

Sistrunk 手术早在 1920 年代就已经开展,是 TGDC 的经典金标准术式,包括行颈前切口完整切除囊肿及瘻管组织、中心性舌骨切除以及从舌盲孔处的上皮管道及周围组织。Zhang 等^[14]认为对于复发的患者 Sistrunk 手术可以防止病情进一步反复。开放手术对于婴幼儿可能会损伤重要解剖结构,本组患者均为成年人,颈部发育已完善,且已行多次手术,术前影像学检查可见囊肿与舌根、舌骨关系密切,与患者充分解释病情后均采用颈外径路 Sistrunk 手术。术中切除舌骨体中部,切开舌甲膜自会厌谷进入咽腔,舌根区域暴露良好,可完整切除囊肿,并扩大切除舌盲孔周围舌根组织及囊肿周围黏膜,对基底部进行处理、结扎,不易残留瘻管组织,缝合残留的咽腔黏膜并加固肌层,以减少复发可能性。本组患者经行颈外径路 Sistrunk 手术后随访至少 1 年均未见复发。

术后并发症常见的有出血、呼吸困难、咽瘘等。由于开放咽腔,需根据术中情况决定术后是否鼻饲饮食。本组患者 3 例术后下胃管鼻饲饮食 7 d 后拔除胃管。1 例老年患者出现咽瘘,可能由于老年人本身抵抗力较差,术后出现伤口感染未及时处理而导致咽瘘,经抗感染、换药后咽瘘愈合。因切除舌根及周围咽腔黏膜、组织后会形成白膜,白膜脱落会导致出血,故应让患者从冷流食逐渐过渡到软食,待白膜完全脱落后正常饮食来减少术后出血概率。本组患者均放置引流管 2 d 后拔除以避免术腔积液。肖洋等^[15]认为术后不放置引流管可以减少术后不良事件包括疼痛、因颈部不适或焦虑、恐惧而导致患儿自行拔出引流管等的发生。成人配合度较高,建议常规放置引流,避免术腔积液导致感染。术后发生呼吸困难既往多报道为术腔血肿压迫气道^[16]。会厌前间隙水肿可使喉部气道变窄以致发生呼吸困难。另外肥胖、颈部短粗的患者容易出现气道阻塞,可根据具体情况术前或术后行气管切开。

综上所述,舌根部或会厌间隙的囊性肿物应考虑 LTGDC 的可能性。纤维喉镜下检查疑似 LTGDC 的患者,术前应行 CT 和/或 MRI 的影像学检查,观察囊肿与舌骨的关系来做鉴别诊断以减少误诊几率。对于成人复发性 LTGDC 的治疗,颈外径路 Sistrunk 手术能够完整切除病变,疗效确切,避免复发。

参考文献:

[1] 阎承先. 小儿耳鼻咽喉科学[M]. 天津:天津科技出版社,

2004;933-934.

- [2] 叶京英,张俊波. 舌甲状舌管囊肿的诊断和治疗[J]. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2012, 47(11): 966-968.
- [3] Solomon JR, Rangelcroft L. Thyroglossal-duct lesions in childhood [J]. J Pediatr Surg, 1984, 19(5): 555-561.
- [4] Ibrahim FF, Alnoury MK, Varma N, et al. Surgical management outcomes of recurrent thyroglossal duct cyst in children-A systematic review[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2015, 79(6): 863-867.
- [5] Burkart CM, Richter GT, Rutter MJ, et al. Update on endoscopic management of lingual thyroglossal duct cysts[J]. Laryngoscope, 2009, 119(10): 2055-2060.
- [6] Sameer KS, Mohanty S, Correa MM, et al. Lingual thyroglossal duct cysts-a review[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2012, 76(2): 165-168.
- [7] 秦凤花,谭乐恬,倪祎华,等. 婴幼儿舌甲状舌管囊肿 44 例临床特点和治疗效果分析[J]. 中国耳鼻咽喉科杂志, 2019, 19(4): 267-271.
- [8] Soliman AMS, Lee JM. Imaging case study of the month. Thyroglossal duct cyst with intralaryngeal extension[J]. Ann Otol Rhinol Laryngol, 2006, 115(7): 559-562.
- [9] Thompson LD. Thyroglossal duct cyst [J]. Ear Nose Throat J, 2017, 96(2): 54-55.
- [10] Turhan M, Bostanci A. Robotic resection of lingual thyroglossal duct cyst in an infant [J]. J Robot Surg, 2019, 13(2): 331-334.
- [11] Li W, Ren YP, Shi YY, et al. Presentation, management, and outcome of lingual thyroglossal duct cyst in pediatric and adult populations[J]. J Craniofac Surg, 2019, 30(5): e442-e446.
- [12] Drusin MA, Pereira NM, Modi VK. Intralingual thyroglossal duct cyst excision[J]. Laryngoscope, 2021, 131(1): 205-208.
- [13] Johnston DR, Maurrasse SE, Maddalozzo J. Transoral robotic surgery excision of lingual thyroglossal duct cysts including the central hyoid bone[J]. Laryngoscope, 2021, 131(4): E1345-E1348.
- [14] Zhang LC, Zhang TY, Sha Y, et al. Lingual thyroglossal duct cyst with recurrence after cystectomy or marsupialization under endoscopy: diagnosis and modified Sistrunk surgery [J]. Laryngoscope, 2011, 121(9): 1888-1892.
- [15] 肖洋,马静,林垦,等. 30 例小儿甲状舌管囊肿术后不置引流管的临床分析[J]. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2018, 24(1): 73-75.
- [16] Pool C, Rosi-Schumacher M, Ehret C, et al. Outpatient Sistrunk procedure: A retrospective analysis[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2020, 139: 110455.

(收稿日期:2022-09-29)

本文引用格式:张婷,李化静,曹亚莉,等. 颈外径路 Sistrunk 手术治疗成人复发性舌甲状舌管囊肿的临床分析[J]. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2023, 29(5): 87-90. DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202322396

Cite this article as:ZHANG Ting, LI Huajing, CAO Yali, et al. Sistrunk surgery outcomes of recurrent lingual thyroglossal duct cyst in adults[J]. Chin J Otorhinolaryngol Skull Base Surg, 2023, 29(5): 87-90. DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202322396