

# 先天性梨状窝瘘的 X 线吞钡造影 与 CT 对比研究



张 杰<sup>1</sup>, 刘红军<sup>2</sup>, 马小敏<sup>1</sup>, 丁雅玲<sup>1</sup>

(1 厦门大学附属妇女儿童医院 厦门市妇幼保健院放射科, 福建 厦门 361003;

2 广东省人民医院放射科 广东省医学科学院, 广东 广州 510080)

**摘要:**目的 探讨 X 线吞钡造影与 CT 对先天性梨状窝瘘(CPSF)的诊断价值。方法 回顾性分析经手术证实的 59 例 CPSF 患者的术前 X 线吞钡造影及 CT 资料。55 例行吞钡造影检查, 57 例行 CT 增强扫描; 观察 CPSF 患者吞钡造影及 CT 表现, 并比较 2 种影像检查方法及不同 CT 征象的阳性率。结果 59 例患者中左侧病变 55 例, 右侧病变 2 例, 双侧病变 2 例。行吞钡造影检查的患者中, 52 例(包括 2 例双侧病变患者)可见 53 条梨状窝窦道或瘘管形成, 3 例患者检查结果阴性。X 线吞钡造影检查的诊断阳性率为 93.0%(53/57)。CPSF 的 CT 表现包括梨状窝变小, 颈部窦道或瘘管形成, 甲状腺上极内侧气泡征, 甲状腺密度减低, 甲状腺形态改变(甲状腺上极缺损征)等。57 例(包括双侧病变患者 2 例共 59 例病变)行 CT 增强检查的患者中, 患侧梨状窝变小 26 例, 阳性率为 44.1%(26/59), 颈部窦道或瘘管形成占 13.6%(8/59), 甲状腺上极内侧气泡征占 55.9%(33/59), 甲状腺密度减低占 16.9%(10/59), 甲状腺形态改变(甲状腺上极缺损征)占 91.5%(54/59)。甲状腺形态和(或)密度异常共占 94.9%(56/59)。结论 X 线吞钡造影诊断 CPSF 阳性率较高, 可作为明确 CPSF 诊断的主要手段。CT 显示 CPSF 的直接征象窦道或瘘管的阳性率不高, 其间接征象甲状腺形态和(或)密度异常阳性率非常高, 对于疑似 CPSF 患者 CT 具有重要提示诊断价值。

**关键词:**先天性梨状窝瘘; 计算机体层成像; 吞钡造影

DOI: 10.3969/j.issn.1002-1671.2019.11.008

中图分类号: R781.7; R814.42; R814.43 文献标志码: A 文章编号: 1002-1671(2019)11-1743-04

## Comparative imaging studies of congenital pyriform sinus fistula using barium esophagography and CT

ZHANG Jie<sup>1</sup>, LIU Hongjun<sup>2</sup>, MA Xiaomin<sup>1</sup>, DING Yaling<sup>1</sup>

(1 Department of Radiology, Women and Children's Hospital,

Xiamen University, Xiamen 361003, China; 2 Department of Radiology, Guangdong Provincial People's Hospital,

Guangdong Academy of Medical Sciences, Guangzhou 510080, China)

**Abstract: Objective** To evaluate the value of barium esophagography and CT in the diagnosis of congenital pyriform sinus fistula (CPSF). **Methods** The preoperative radiographic data of 59 CPSF patients were analyzed retrospectively, which were confirmed by operation. 55 patients underwent barium esophagography, and 57 patients underwent pre-and post-contrast CT scans. The images of barium esophagography and CT were analyzed and the positive diagnostic rates (PDR) between the two imaging modalities and among the different CT features were compared. **Results** Among the 59 patients, left fistula was found in 55 cases, right fistula was found in 2 cases and bilateral fistula in 2 cases. For the patients examined with barium esophagography, 53 sinus tracts or fistulas from the pyriform in 52 patients (including 2 patients with bilateral fistula) were depicted. The other 3 patients had negative results. The overall PDR of barium esophagography was 93.0%(53/57). CT findings of CPSF included the narrowness of pyriform fossa, sinus tract or fistula in the neck, bubble sign medial to the superior pole of thyroid, low density in thyroid, thyroid morphologic change, and so on. For the 57 patients (including 2 patients with bilateral fistula) examined with CT. The PDR of narrowness of pyriform fossa was 44.1%(26/59), the PDR of sinus tract or fistula was 13.6%(8/59), the PDR of bubble sign medial to the superior pole of thyroid was 55.9%(33/59), the PDR of low density in thyroid was 16.9%(10/59), the PDR of thyroid morphologic change (defect sign of superior pole of thyroid) was 91.5%(54/59). And the total PDR of thyroid density or morphologic change was 94.9%(56/59). **Conclusion** Barium esophagography can be the main modality

to diagnose CPSF because of its high PDR. Although the PDR of CT for direct sign (sinus tract or fistula) is not high, its PDR for indirect sign (thyroid density or morphologic change) is

**作者简介:**张 杰(1971-),男,福建省南平市人,本科,副主任医师。研究方向:小儿放射学。

通信作者:刘红军, E-mail: lhj0152@126.com

very high. So CT has great value for patients suspected of CPSF.

**Key words:** congenital pyriform sinus fistula; computed tomography; barium esophagography

先天性梨状窝瘘 (congenital pyriform sinus fistula, CPSF) 是一种罕见的颈部鳃源性畸形, 由于胚胎早期第三或第四咽囊不完全闭锁所致, 占有鳃源性畸形的 5% 以下。其临床表现主要为反复的颈部感染、脓肿形成以及急性化脓性甲状腺炎<sup>[1-2]</sup>。颈部其他感染性病变如蜂窝组织炎、淋巴结化脓性炎或结核、囊肿合并感染等临床表现与 CPSF 相似, 明确感染病因对治疗方案的选择非常重要, 其中影像学具有不可替代的作用。本研究分析了 CPSF 的 X 线下咽造影与 CT 表现, 旨在评价 2 种影像学检查方法的价值。

## 1 资料与方法

**1.1 一般资料** 回顾性分析 2010 年 5 月至 2017 年 12 月厦门大学附属妇女儿童医院经手术证实的 59 例 CPSF 患者的术前 X 线下咽造影及 CT 资料。其中 55 例行下咽造影检查, 57 例行 CT 平扫及增强扫描。59 例患者中男 31 例, 女 28 例, 最小年龄 8 个月, 最大年龄 59 岁, 中位年龄 17 岁, 病程 1 月~50 年, 中位病程 19 年。临床表现均表现有颈部红肿、疼痛。

### 1.2 影像检查方法

**1.2.1 X 线下咽造影检查** 55 例患者行下咽造影检查, 采用西门子 R200 数字胃肠机, 钡剂采用青岛东风化工有限公司生产的双对比 II 型干混悬剂, 质量浓度为 60%。嘱患者做捏鼻、鼓气、吞咽动作, 分别进行下咽部正位、侧位及斜位观察并摄片。

**1.2.2 CT 检查** 57 例行 CT 平扫及增强扫描, 采用东芝 Aquilion TSX-101A 64 排 CT 机, 范围由口咽至胸骨上窝。扫描参数: 电压 120 kV, 电流 200 mA, 层厚 5.00 mm, 重组层厚 1.25 mm。增强扫描对比剂为碘普罗胺注射液 (370 mg I/mL), 总剂量 1.0~1.5 mL/kg, 流率 3.5 mL/s, 注射对比剂后 40 s 启动扫描。

**1.3 图像分析** 由 1 名放射科副主任医师 (25 年工作经验) 和 1 名放射科主治医师 (15 年工作经验) 共同判读影像学资料, 意见如有分歧请第三方 (放射科主任医师, 30 年工作经验) 参与阅片协商并达成一致意见。最后统计不同影像检查以及 CT 不同征象的阳性率。

## 2 结果

**2.1 病变分布** 59 例患者中左侧病变 55 例, 右侧病变 2 例, 双侧病变 2 例, 左侧病变占 93.2% (55/59)。

**2.2 X 线吞钡造影表现** 共计 55 例患者完成吞钡造影检查, 其中 52 例 (包括 2 例双侧病变患者) 可见 53

条梨状窝窦道或瘘管形成 (图 1), 3 例患者检查结果阴性。X 线吞钡造影检查的诊断阳性率为 93.0% (53/57)。

**2.3 CT 表现** 共计 57 例患者 (包括双侧病变患者 2 例共 59 侧病变) 完成 CT 增强扫描。CPSF 的 CT 表现包括梨状窝变小, 颈部窦道或瘘管形成, 甲状腺上极内侧气泡征, 甲状腺密度减低, 甲状腺形态改变 (甲状腺上极缺损征) 等 (图 2)。57 例患者中, 患侧梨状窝变小 26 侧, 阳性率为 44.1% (26/59), 颈部窦道或瘘管形成占 13.6% (8/59), 甲状腺上极内侧气泡征占 55.9% (33/59), 甲状腺密度减低占 16.9% (10/59), 甲状腺形态改变 (甲状腺上极缺损征) 占 91.5% (54/59)。甲状腺形态和 (或) 密度异常共占 94.9% (56/59)。

## 3 讨论

**3.1 发病机制** 梨状窝是位于喉口两侧对称性的 2 个狭窄隐窝。梨状窝瘘是胚胎发育过程中第三或第四咽囊退化不全的组织发育而形成, 又称为第三或第四鳃囊瘘管。瘘管起自梨状窝底部, 穿过下咽缩肌和/或环甲肌, 紧邻甲状软骨下角内侧或外侧走行, 终于甲状腺上极或周围<sup>[3-4]</sup>。梨状窝瘘 90% 发生在左颈, 可能与胚胎早期双侧鳃弓发育不对称等有关。本组病例中左侧梨状窝瘘占 93.2% (55/59), 与文献报道相符。右侧梨状窝瘘极其少见, 如果发现右侧梨状窝瘘, 应仔细观察左侧梨状窝情况, 注意双侧梨状窝瘘的可能性。本组病例中有 2 例右侧梨状窝瘘及 2 例双侧梨状窝瘘, 其中 1 例双侧梨状窝瘘患者临床表现为右侧颈部炎性包块, 吞钡造影检查发现双侧梨状窝瘘。

**3.2 临床表现** 梨状窝瘘多见于儿童, 也可见于其他年龄段患者, 甚至在胎儿时期发现<sup>[4]</sup>。不同年龄段患者临床表现有所不同; 新生儿可由于颈部囊肿压迫呼吸道造成呼吸困难及喘鸣, 较大儿童或成人多表现为反复的颈部感染、脓肿及瘘管形成。临床病例多为不完全型梨状窝瘘, 非感染期时可无任何症状和体征, 当上呼吸道或口腔感染时, 细菌可经瘘口抵达颈深部, 出现咽喉不适、发热、颈部红肿疼痛, 偶尔表现为颈部弥漫性蜂窝组织炎, 伴有颈部淋巴结肿大。随着炎症进展, 局部可形成颈深部脓肿, 由于颈部浅层肌肉、筋膜较厚, 触诊时常表现为较硬的包块, 波动感不易扪及, 切开引流或自行破溃后症状缓解, 但易反复发作或形成持久不愈的瘘管<sup>[5-6]</sup>。本组病例患者中位年龄为 17 岁, 最小患者年龄 8 个月, 最大患者年龄 59 岁, 但其病史已有 50 年, 提示梨状窝瘘多于儿童及青年期发病,

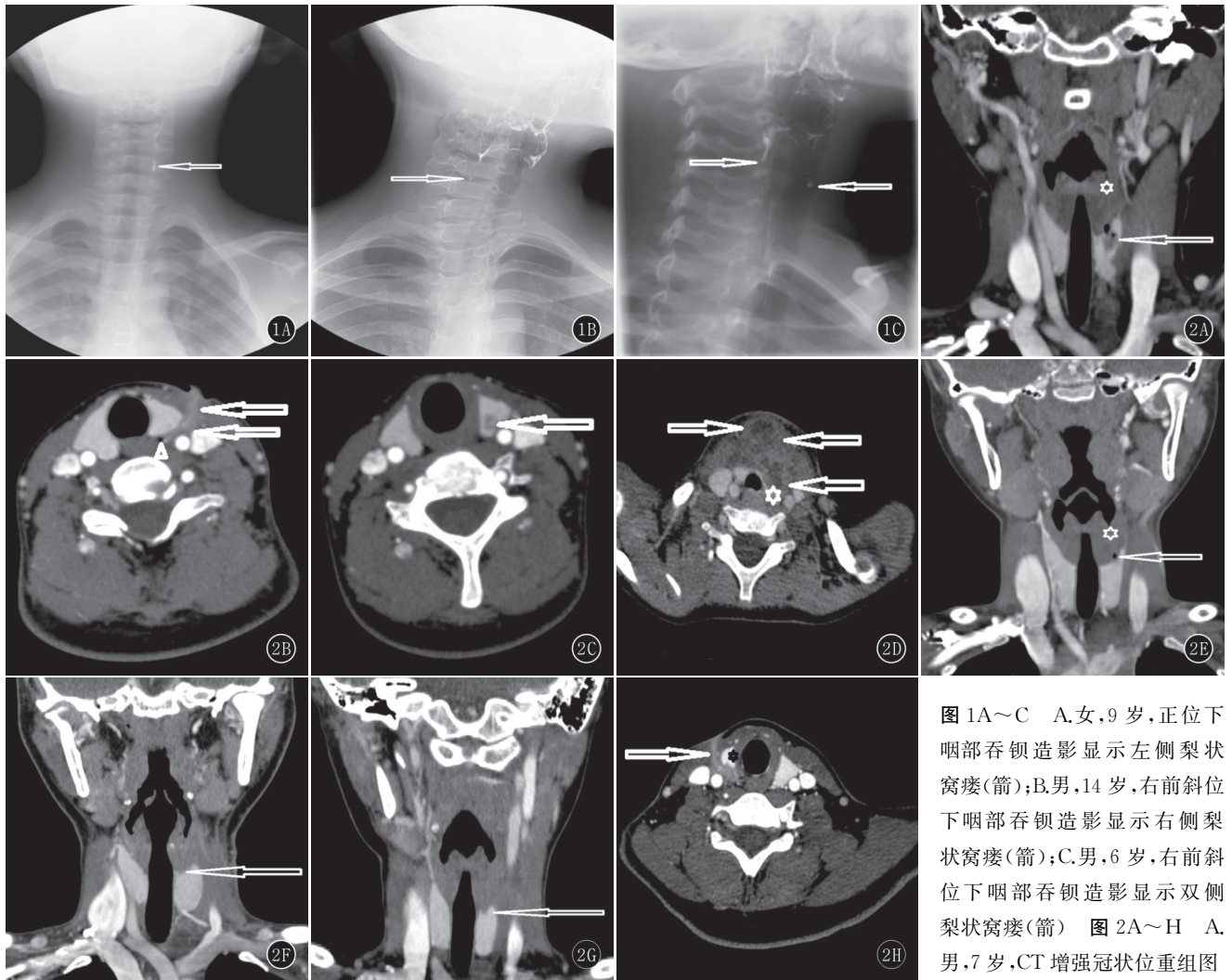


图 1A~C A, 女, 9 岁, 正位下咽部吞钡造影显示左侧梨状窝瘘(箭); B, 男, 14 岁, 右前斜位下咽部吞钡造影显示右侧梨状窝瘘(箭); C, 男, 6 岁, 右前斜位下咽部吞钡造影显示双侧梨状窝瘘(箭) 图 2A~H A, 男, 7 岁, CT 增强冠状位重组图像显示左侧梨状窝变小(星), 甲状腺左叶上极低密度影并气泡(箭); B, 男, 28 岁, CT 增强横断位图像显示甲状腺左叶后方气泡(三角)及外侧瘘管呈条状强化影(箭); C, 与 B 为同一患者, CT 增强横断位图像显示甲状腺左叶上极低密度影(箭); D, 女, 3 岁, CT 增强横断位图像显示左颈前部蜂窝状脓肿(箭), 累及甲状腺左叶(星); E, 男, 9 岁, CT 增强冠状位重组图像显示左侧梨状窝变小(星), 甲状腺左叶上极缺损并气泡(箭); F, 女, 22 岁, CT 增强冠状位重组图像仅显示左侧甲状腺形态改变, 左叶上极缺损征(箭); G, 男, 9 岁, CT 增强冠状位重组图像仅显示左侧甲状腺形态改变, 左叶上极缺损征(箭); H, 女, 14 岁, CT 增强横断位图像显示甲状腺右叶上极缺损征(星)及外侧瘘管呈条状强化影(箭)

像显示左侧梨状窝变小(星), 甲状腺左叶上极低密度影并气泡(箭); B, 男, 28 岁, CT 增强横断位图像显示甲状腺左叶后方气泡(三角)及外侧瘘管呈条状强化影(箭); C, 与 B 为同一患者, CT 增强横断位图像显示甲状腺左叶上极低密度影(箭); D, 女, 3 岁, CT 增强横断位图像显示左颈前部蜂窝状脓肿(箭), 累及甲状腺左叶(星); E, 男, 9 岁, CT 增强冠状位重组图像显示左侧梨状窝变小(星), 甲状腺左叶上极缺损并气泡(箭); F, 女, 22 岁, CT 增强冠状位重组图像仅显示左侧甲状腺形态改变, 左叶上极缺损征(箭); G, 男, 9 岁, CT 增强冠状位重组图像仅显示左侧甲状腺形态改变, 左叶上极缺损征(箭); H, 女, 14 岁, CT 增强横断位图像显示甲状腺右叶上极缺损征(星)及外侧瘘管呈条状强化影(箭)

与文献报道一致。本组病例均有不同程度的颈部感染症状及体征, 其中 18 例曾行颈部脓肿切开引流术, 说明临床对该病认识不足, 误诊率较高。

**3.3 影像学检查方法** 颈部病变常用的影像学检查方法包括超声、X 线吞钡造影、CT 及 MRI。超声能发现颈深部软组织感染, 尤其是当脓肿形成时超声较敏感, 当感染累及到甲状腺, 超声可显示患侧甲状腺弥漫性肿大并伴有不均匀占位, 但超声显示窦道或瘘管的几率较低, 不能明确诊断 CPSF, 临床应用价值有限<sup>[6]</sup>。

X 线吞钡造影检查简单易行, 可显示窦道或瘘管, 临床应用较普遍, 梨状窝瘘多表现为患侧梨状窝底部细管状钡剂充盈区。由于部分梨状窝瘘管较细, 且长短不一, 容易漏诊, 因此造影过程中钡剂浓度不易过

高, 透视过程需要缓慢、耐心转动体位, 仔细观察。另外在炎症急性期, 可因组织水肿导致瘘口阻塞, 造影检查可为阴性, 因此最好在炎症消退后 6~8 周再行造影检查<sup>[7-8]</sup>。本组病例 X 线吞钡造影显示窦道或瘘管的阳性率高达 93.0% (53/57), 高于文献报道, 可能由于本组病例中无新生儿患者, 本研究中临床医师经验丰富, X 线造影检查前已高度怀疑梨状窝瘘, 放射科医师造影过程中目的明确, 以及大部分患者行 X 线造影检查时颈部炎症已得到控制。

CT 检查扫描速度快, 密度及空间分辨率高, 以及甲状腺组织对碘对比剂的独特吸收作用, 在颈部病变诊断中应用广泛。梨状窝瘘 CT 平扫多表现为患侧梨状窝变浅或消失, 患侧(多为左侧)颈部软组织蜂窝组

织炎累及同侧甲状腺,低密度脓腔形成,有时还可见甲状腺上极或其内侧间隙小气泡影。CT 增强扫描由于窦道或瘘管壁出现强化而表现为条索样或管状高度影,出现颈部脓肿时增强扫描脓肿壁强化,更能清晰显示病变范围及与邻近结构的关系<sup>[2,9-10]</sup>。另外由于甲状腺组织对碘的浓聚作用,增强扫描对甲状腺内病灶及甲状腺轮廓显示更清晰。本组病例中 CT 检查发现甲状腺形态和(或)密度异常者比例非常高,达 94.9% (56/59),对于颈部感染性病变累及甲状腺者,该征象强烈提示梨状窝瘘。

MRI 软组织分辨率高、无辐射,也较多应用于颈部病变诊断。MRI 同样可以显示窦道或瘘管、甲状腺及颈部炎症,以及病灶与周围组织的毗邻关系。文献报道 MRI 诊断 CPSF 的阳性率与 CT 相似,然而 MRI 扫描时间较长,对磁场均匀度及患者制动要求较高,长时间扫描状态下患儿不配合,呼吸、吞咽动作伪影,以及 MRI 对甲状腺的显示不如 CT 等缺点限制了其在诊断 CPSF 中的应用<sup>[2,11]</sup>。

### 3.4 CT 联合 X 线吞钡造影对梨状窝瘘的诊断价值

CPSF 是一种少见的先天畸形,合并感染时与颈部蜂窝组织炎、淋巴结炎、囊肿合并感染表现相似,首次出现症状常难以明确诊断<sup>[12-13]</sup>。临床上颈部病变检查多首选 CT 而非 X 线造影,认识 CPSF 的 CT 表现对临床诊治非常重要。CPSF 的 CT 表现包括患侧梨状窝变小,颈部窦道或瘘管形成,甲状腺上极内侧气泡征,甲状腺密度减低,甲状腺形态改变(甲状腺上极缺损征)等。直接征象(窦道或瘘管形成)对 CPSF 诊断价值大,但显示率较低,仅为 13.6%。而炎症累及甲状腺所致形态和(或)密度改变的敏感性可达 94.9%,虽然其特异性尚不明确,但根据解剖学知识及临床经验,甲状腺组织外被覆有纤维囊(甲状腺被囊)、腺体血供和淋巴回流丰富,有很强的抗感染能力,一般颈部炎性病变不容易累及甲状腺,所以颈部(尤其是左侧)感染性病变并伴有甲状腺形态及密度改变者一定要怀疑 CPSF 的可能性。X 线吞钡造影可显示 CPSF 的窦道或瘘管,从而做出准确诊断、指导治疗方案的制订。颈部炎症得到控制的患者,X 线吞钡造影阳性率较高,尤其对于经过 CT 检查怀疑 CPSF 患者,重点观察梨状窝,进一步提高其阳性率。总之,CPSF 的诊断不同于其他颈部病变,CT 可发现疑似患者,X 线吞钡造影显示窦道或瘘管则可明确诊断,二者联合应用对 CPSF 的诊疗具有较高价值。

### 参考文献:

- [1] GADDIKERI S, VATTOTH S, GADDIKERI R S, et al. Congenital cystic neck masses: embryology and imaging appearances with clinicopathological correlation[J]. *Curr Probl Diagn Radiol*, 2014, 43(2): 55-67. DOI: 10.1067/j.cpradiol.2013.12.001.
- [2] 梁璐, 陈良嗣, 周正根, 等. 先天性梨状窝瘘的影像特征[J]. *中华放射学杂志*, 2016, 50(3): 196-200. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1005-1201.2016.03.008.
- [3] 王奥楠, 邬海博. 鳃裂瘘管的 CT 及 MRI 表现[J]. *实用放射学杂志*, 2018, 34(4): 515-517. DOI: 10.3969/j.issn.1002-1671.2018.04.007.
- [4] ZENG S H, LIU H S, ZHONG W, et al. Can we make an accurate diagnosis of pyriform sinus fistula by fetal MRI? [J]. *Clin Radiol*, 2016, 71(9): 837-843. DOI: 10.1016/j.crad.2016.05.012.
- [5] LIBERMAN M, KAY S, EMIL S, et al. Ten years of experience with third and fourth branchial remnants[J]. *J Pediatr Surg*, 2002, 37(5): 685-690. DOI: 10.1053/jpsu.2002.32253.
- [6] PAN J, ZOU Y, LI L, et al. Clinical and imaging differences between neonates and children with pyriform sinus fistula: which is preferred for diagnosis, computed tomography, or barium esophagography? [J]. *J Pediatr Surg*, 2017, 52(11): 1878-1881. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2017.08.006.
- [7] WANG H K, TIU C M, CHOU Y H, et al. Imaging studies of pyriform sinus fistula[J]. *Pediatr Radiol*, 2003, 33(5): 328-333. DOI: 10.1007/s00247-003-0887-8.
- [8] 尹传高, 史自锋, 齐炜炜. 儿童梨状窝瘘的临床及影像学分析[J]. *实用放射学杂志*, 2015, 31(10): 1684-1686. DOI: 10.3969/j.issn.1002-1671.2015.10.028.
- [9] ZHANG P, TIAN X. Recurrent neck lesions secondary to pyriform sinus fistula[J]. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2016, 273(3): 735-739. DOI: 10.1007/s00405-015-3572-2.
- [10] SHENG Q, LV Z, XIAO X, et al. Diagnosis and management of pyriform sinus fistula: experience in 48 cases[J]. *J Pediatr Surg*, 2014, 49(3): 455-459. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2013.07.008.
- [11] AMANO H, UCHIDA H, SATO K, et al. Differences in the characteristics and management of pyriform sinus fistula between neonates and young children[J]. *Pediatr Surg Int*, 2012, 28(1): 15-20. DOI: 10.1007/s00383-011-3008-z.
- [12] MOU J W, CHAN K W, WONG Y S, et al. Recurrent deep neck abscess and pyriform sinus tract: a 15-year review on the diagnosis and management[J]. *J Pediatr Surg*, 2014, 49(8): 1264-1267. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2013.10.018.
- [13] MADANA J, YOLMO D, KALAIARASI R, et al. Recurrent neck infection with branchial arch fistula in children[J]. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2011, 75(9): 1181-1185. DOI: 10.1016/j.ijporl.2011.06.016.

(收稿日期: 2019-01-12; 修回日期: 2019-06-13)