

胎儿纵隔型支气管源性囊肿的 MRI 诊断 (3 例报道并文献复习)

杨朝湘 陈文俊 沈敏 韩鹏慧

(广东省妇幼保健院 放射科, 广东 广州 510010)

【摘要】 目的 探讨胎儿纵隔型支气管源性囊肿在产前 MRI 上的特点。**方法** 对 3 例手术病理证实的胎儿纵隔支气管源性囊肿的产前 MRI 特点结合产后 CT 表现进行分析, 并复习文献总结胎儿纵隔支气管源性囊肿的产前 MRI 诊断与鉴别诊断。**结果** 胎儿纵隔支气管源性囊肿多为单发, 类圆形, 边界清楚的囊性肿块, 少数可呈分叶状或不规则形, 多与气管支气管关系密切。鉴别诊断包括食管重复囊肿、淋巴管瘤、神经肠源性囊肿等。**结论** 胎儿纵隔型支气管源性囊肿的 MRI 表现具有一定的特征性, 有利于其产前 MRI 诊断。

【关键词】 磁共振成像; 产前诊断; 支气管源性囊肿

【中图分类号】 R445.4 **【文献标识码】** A

【Abstract】 Objective To evaluate the features of fetal mediastinal type bronchogenic cyst on prenatal MRI. **Method** The prenatal MR images and postnatal CT images of 3 cases with mediastinal type bronchogenic cyst confirmed by pathology were analyzed retrospectively. The characteristics of MRI diagnosis and differentiation diagnosis were summarized through literature review. **Results** The fetal mediastinal type bronchogenic cyst on MRI was usually shown as a single, round-like, well-defined cystic mass, some had the lobulated or irregular shape. Most of them closely attached to trachea and bronchus. The differentiation diagnosis included esophageal cyst, lymphangioma, enterogenous cyst, etc. **Conclusions** Fetal mediastinal type bronchogenic cysts have characteristic MRI features, which favor their prenatal diagnosis.

【Key words】 magnetic resonance imaging; prenatal diagnosis; bronchogenic cyst

胎儿支气管源性囊肿相比于肺囊性腺瘤样畸形、隔离肺等其他先天性肺畸形病变要明显少见。关于其产前 MRI 的相关报道, 国内外均较少。我们在 2014 年 1 月至 2015 年 12 月间由 MRI 发现, 并最终由病理证实胎儿支气管源性囊肿 3 例, 现总结如下。

1 临床资料与结果

1.1 病例 1

1.1.1 基本资料 25 岁孕妇, 于孕 26 周时行产前超声检查提示“胸主动脉右前方囊肿”。为进一步明

确诊断而于次日行产前 MRI 检查(设备为美国 GE 公司 1.5T Brivo 超导型磁共振机)。MRI 示, 于纵隔奇静脉食管隐窝位置(心脏后方及胸主动脉右前方)见一类圆形囊肿灶影, SSFSE 序列 T2WI 上呈均匀高信号(图 1), FIRM 序列 T1WI 上呈均匀低信号, 边界清楚, 大小 1.0 cm×0.8cm。冠状位隐约示囊肿灶与右肺下叶支气管关系较密切(图 2)。产前 MRI 考虑纵隔内支气管源性囊肿可能性大。后又于孕 36 周时复查产前超声一次, 大小形态未见变化。该孕妇于孕 39⁺₅ 周时顺产娩出一活婴, 生后反应好, 无呼吸困难, 阿氏评分为 9-10-10 分。

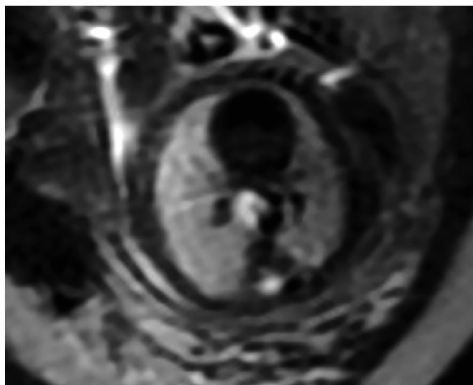


图 1 孕 26 周产前 MRI SSFSE 序列 T2WI 轴位示奇静脉食管隐窝处一囊肿灶,呈均匀高信号,大小为 1.0cm×0.8cm

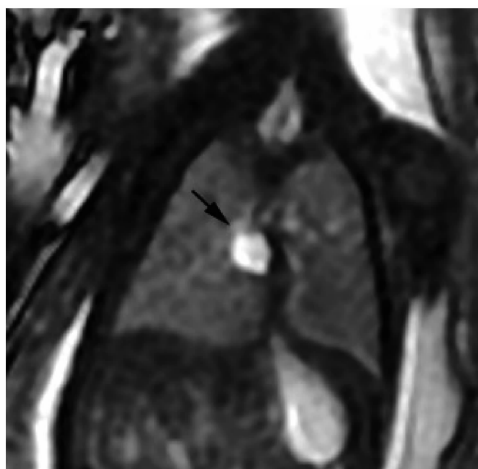


图 2 产前 MRI SSFSE 序列 T2WI 冠状位隐约示囊肿灶与右肺下叶支气管(箭示)关系密切

1.1.2 诊断结果 患儿于产后第 2 天行胸部 CT 平扫及增强扫描(设备为德国 Siemens 公司 SOM-ATOM 128 层 CT 机)。CT 示:于右后纵隔心脏后方见低密度灶影,界较清,增强后无强化(图 3),大小为 1.0 cm×0.9cm。于冠状重建肺窗图像上示病灶与邻近之右肺下叶支气管及食管关系密切。右肺下叶支气管管腔略显受压(图 4)。CT 考虑支气管囊肿与食管囊肿相鉴别。

患儿于产后第 9 天行胸腔镜下纵隔病灶切除术。术中于右肺下叶支气管与食管之间见一圆形囊肿,同右下叶支气管粘连紧密,未见有异常血供。以抓钳和超声刀配合分离切除囊肿。术后病理示囊腔内衬假复层纤毛柱状上皮(图 5)。符合支气管源性囊肿。

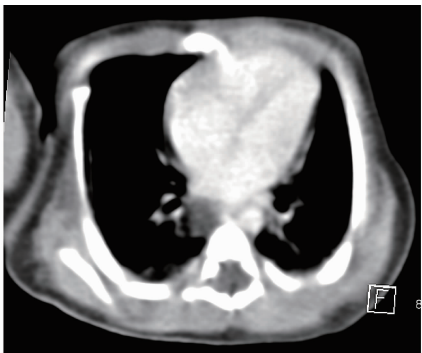


图 3 生后 CT 增强示右后纵隔类圆形无强化低密度囊肿灶,边界清楚

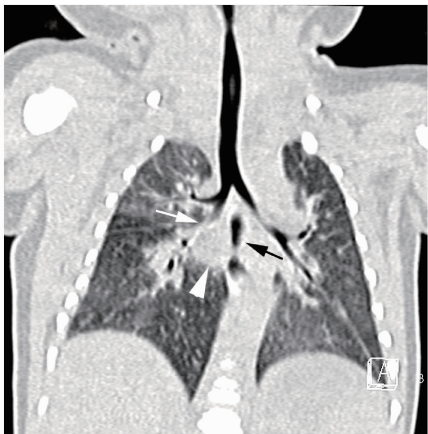


图 4 肺窗冠状位重建图像示囊肿灶(白箭头示)位于右肺下叶支气管(白箭头示)与食管(黑箭头示)之间

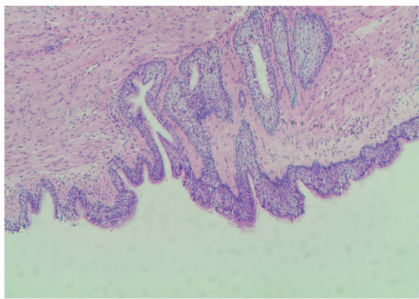


图 5 囊腔内衬假复层纤毛柱状上皮(HE 染色,×40)

1.2 病例 2

1.2.1 基本资料 27 岁孕妇,于孕 30 周时行产前超声检查提示“左侧胸腔无回声区声像,考虑后纵隔来源可能”。为进一步明确诊断而于当日行产前 MRI 检查。MRI 示,左后纵隔胸主动脉外侧旁囊肿影,SSFSE 序列 T2WI 上呈均匀高信号(图 6),T1WI 上呈低信号,边界清楚,大小 0.8cm×1.3cm。

产前 MRI 考虑左后纵隔囊性占位性病变,支气管源性囊肿?食管重复囊肿?后于孕 37 周时复查产前超声一次,囊肿有所增大至 $1.1\text{cm} \times 1.5\text{cm}$ 。该孕妇于孕 38^{+2} 周时顺产娩出一活婴,生后无气促,无呼吸困难,阿氏评分为 9-10-10 分。

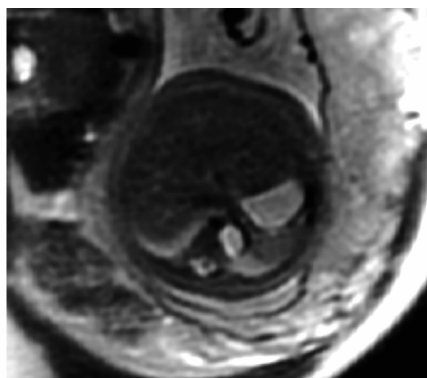


图 6 孕 30 周产前 MRI SSFSE 序列 T2WI 轴位示左后纵隔一囊肿灶,呈均匀高信号,大小为 $0.8\text{cm} \times 1.3\text{cm}$

1.2.2 诊断结果 患儿产后第 2 天行胸部 CT 平扫及增强扫描。CT 示:于左后纵隔降主动脉左后方见一囊性低密度灶,界清,增强后无强化(图 7),大小为 $1.7\text{cm} \times 1.9\text{cm}$ 。因患儿无明显临床症状,遂嘱定期复查。患儿后于 5 个月时复查 CT 示,囊肿灶较前次 CT 有所增大,大小为 $2.1\text{cm} \times 2.3\text{cm}$ (图 8)。

鉴于囊肿持续性增大,遂于 5 个月时行胸腔镜下纵隔病灶切除术。术中于左后纵隔见一异常不充气囊性组织,与左肺下叶有粘连。置入抓钳和热能刀将其分离切除。术后病理:(左纵隔)良性囊肿,囊壁内衬纤毛柱状上皮,考虑为支气管源性囊肿(图 9)。



图 7 生后第 2 天 CT 增强示左后纵隔病灶呈无强化类圆形,边界清楚,大小为 $1.7\text{cm} \times 1.9\text{cm}$



图 8 患儿 5 个月时复查 CT 示,左后纵隔病灶增大至 $2.1\text{cm} \times 2.3\text{cm}$

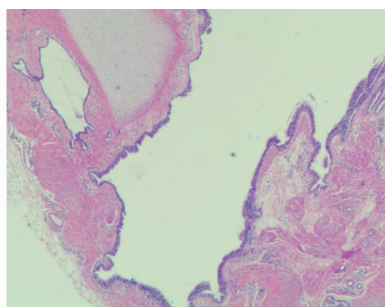


图 9 囊壁内衬纤毛柱状上皮(HE 染色, $\times 40$)

1.3 病例 3

1.3.1 基本资料 27 岁孕妇,于孕 25 周时行产前超声检查提示“胎儿右侧胸腔内囊性肿块声像一肺囊腺瘤畸形?”。为进一步明确诊断而于次日行产前 MRI 检查。MRI 轴位及冠状位示,右上纵隔气管旁囊肿影,与气管关系密切(图 10、11),SSFSE 序列 T2WI 上呈均匀高信号,T1WI 上呈低信号,边界清楚,大小 $1.7\text{cm} \times 2.1\text{cm}$ 。产前 MRI 考虑纵隔支气管源性囊肿。后于孕 36 周时复查产前超声一次,囊肿增大至 $2.6\text{cm} \times 3.2\text{cm}$ 。于复查超声后 4 天,该孕妇于孕 36^{+6} 周时顺产娩出一活婴,生后无气促发绀,阿氏评分为 10-10-10 分。

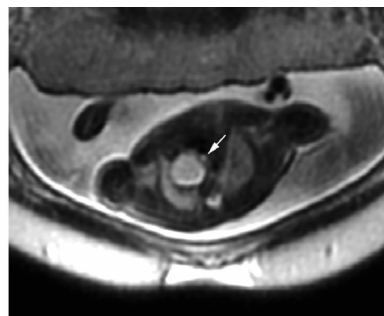


图 10 孕 25 周产前 MRI SSFSE 序列 T2WI 轴位示右上纵隔一囊肿灶,呈均匀高信号,大小为 $1.7\text{cm} \times 2.1\text{cm}$,紧邻气管(白箭示)



图 11 SSFSE 序列 T2WI 冠状位示囊肿灶呈欠规则形,与气管关系密切(白箭示)

1.3.2 诊断结果 患儿产后第 2 天行胸部 CT 平扫及增强扫描。CT 示:于右上纵隔气管旁见一欠规则形囊性低密度灶,界清,增强后无强化(图 12),大小为 $2.8\text{cm} \times 3.2\text{cm}$,邻近之气管略显受压。CT 考虑支气管源性囊肿。

患儿于产后第 7 天行胸腔镜下纵隔病灶切除术。术中于右侧胸膜顶见一囊性肿块,颜色较周围深,边界清。以抓钳和超声刀分离囊肿,至根部见同气管粘连紧密,未见两者间有异常相通,遂完整分离切除。术后病理:(右纵隔)送检囊壁样物,被覆纤毛柱状上皮,符合支气管源性囊肿改变(图 13)。

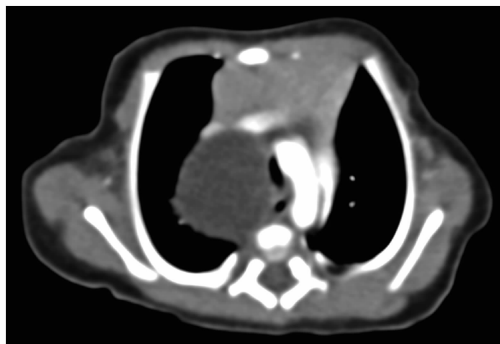


图 12 生后第 2 天 CT 增强示右上纵隔气管旁无强化囊肿灶,边界清楚,大小 $2.8\text{cm} \times 3.2\text{cm}$,邻近气管略受压

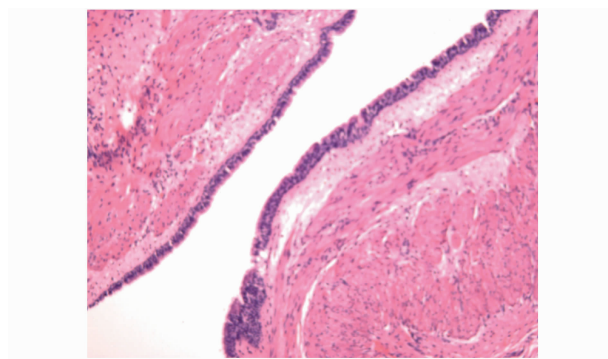


图 13 囊壁被覆纤毛柱状上皮(HE 染色, $\times 40$)

2 讨论

支气管源性囊肿约占先天性支气管肺前肠囊性畸形的 $20\% \sim 30\%$ ^[1]。关于支气管源性囊肿的成因,多认为是原始前肠腹侧分化出肺芽,以及之后气管支气管树发育的过程中发生了异常分芽或分支,进而形成与气道相分离的异常囊袋状结构,囊内细胞分泌的粘液积聚而形成囊肿^[2,3]。如果发生在发育早期,就形成纵隔型支气管源性囊肿;而发生在发育晚期则形成肺内型支气管源性囊肿,又称先天性肺囊肿。此外,还有异位于颈部和腹膜后的产前病例报道^[4,5]。本组 3 例均为发生于纵隔的支气管源性囊肿。

据文献所述,纵隔支气管源性囊肿多见于气管右侧及气管隆突后方^[4,6]。可位于气管支气管旁,也可和支气管壁紧密附着。甚至可经发育缺损处突入气管支气管腔内^[7]。依据以上囊肿与气道的相互关系,Klin 等^[8]将其分为 3 型:气管旁型、管壁型和管腔内型。组织学上,支气管源性囊肿腔内衬纤毛柱状呼吸型上皮,囊壁还可见软骨、平滑肌和黏膜腺体。本组 3 例病理均可见典型的纤毛柱状呼吸型上皮。

目前国内外报道的胎儿纵隔支气管源性囊肿多由产前超声发现^[2,9,10],产前 MRI 的报道尚少^[7]。胎儿纵隔支气管源性囊肿在 MRI 上多表现为纵隔内类圆形、边界清楚的囊肿灶,少数可呈分叶状或不规则形。多数囊肿表现均匀的长 T1 长 T2 信号,正如本组 3 例所见。当囊内容物含较多黏蛋白成分

时,T1WI上可呈高信号。但目前这只见于出生后的病例报道^[11],尚未见于产前病例报道。囊肿可见与气管、支气管结构关系密切,此为诊断的提示性征像。严重的可导致气管支气管明显受压,甚至闭塞,并引发患侧肺液潴留而膨大^[7]。本组有2例可见囊肿与气管支气管关系紧密。其中1例的邻近气管有轻度受压改变。如果支气管源性囊肿未与气道毗邻,或囊肿较大而毗邻关系复杂时,则产前MRI明确诊断较为困难。

鉴别诊断包括食管重复囊肿、淋巴管瘤、神经肠源性囊肿、肺囊性腺瘤样畸形和隔离肺等。食管重复囊肿多发生于食管下段的右侧,多与食管关系密切,椭圆形或管形,倾向于沿食管呈纵向走行。纵隔淋巴管瘤形态多不规则,发生于后纵隔者可包绕主动脉。神经肠源性囊肿常合并椎体和椎管异常^[9]。肺囊性腺瘤样畸形和隔离肺邻近纵隔时,尤其是毗邻后纵隔且病灶内无明显囊泡形成时,在产前需与纵隔支气管源性囊肿相鉴别,如本组病例2。相较而言,支气管源性囊肿形态更接近于圆形,与纵隔关系更为密切,以及灶内无血管纹理等可资鉴别。

较小的纵隔支气管源性囊肿若无临床症状,可选择随访观察。当囊肿较大或进展性增大时可因压迫气道而产生呼吸困难,或可引发反复肺部感染等,则需手术切除。但也有观点认为,支气管源性囊肿无论有无症状,均应积极手术治疗,以避免后继发展而导致的可能的的心脏和呼吸道损害^[12]。支气管源性囊肿一般预后良好,但也有恶变的报道^[13],值得临床注意。

参考文献

- [1] Parikh D, Samuel M. Congenital cystic lung lesions: is surgical resection essential? [J]. *Pediatric Pulmonology*, 2005, 40(6): 533-537.
- [2] Young G, L'Heureux PR, Krueckeberg ST, et al. Mediastinal bronchogenic cyst: prenatal sonographic diagnosis [J].

- AJR Am J Roentgenol, 1989, 152(1): 125-127.
- [3] Sahinoglu Z, Peker H, Etker S, et al. Difficulties in perinatal diagnosis of fetal thoracic foregut cysts [J]. *J Obstet Gynaecol*, 2005, 25(2): 211-214.
- [4] Goswamy J, de Kruijff S, Humphrey G, et al. Bronchogenic cysts as a cause of infantile stridor: case report and literature review [J]. *J Laryngol Otol*, 2011, 125(10): 1094-1097.
- [5] Bagolan P, Bilancioni E, Nahom A, et al. Prenatal diagnosis of a bronchogenic cyst in an unusual site [J]. *Ultrasound Obstet Gynecol*, 2000, 15(1): 66-68.
- [6] Maly T, Mihal V, Michalkova K, et al. Retroperitoneal bronchogenic cyst: prenatal diagnosis of cystoid formation, its progression and surgery [J]. *Bratisl Lek Listy*, 2014, 115(2): 98-100.
- [7] Levine D, Jennings R, Barnewolt C, et al. Progressive fetal bronchial obstruction caused by a bronchogenic cyst diagnosed using prenatal MR imaging [J]. *Am J Roentgenol*, 2001, 176(1): 49-52.
- [8] Klin B, Springer C, Segal M, et al. Recurrent cyanotic spells caused by a segmental intramural cyst of the upper trachea [J]. *Pediatr Pulmonol*, 1994, 18(2): 119-121.
- [9] Bernasconi A, Yoo SJ, Golding F, et al. Etiology and outcome of prenatally detected paracardial cystic lesions: a case series and review of the literature [J]. *Ultrasound Obstet Gynecol*, 2007, 29(4): 388-394.
- [10] 宋宴鹏, 毛翠艳, 胡晓阳. 超声诊断胎儿支气管囊肿1例 [J]. *中国临床医学影像杂志*, 2014, 25(6): 455.
- [11] McAdams HP, Kirejczyk WM, Rosado-de-Christenson ML, et al. Bronchogenic cyst: imaging features with clinical and histopathologic correlation [J]. *Radiology*, 2000, 217(2): 441-446.
- [12] Stewart B, Cochran A, Iglesia K, et al. Unusual case of stridor and wheeze in an infant: tracheal bronchogenic cyst [J]. *Pediatr Pulmonol*, 2002, 34(4): 320-323.
- [13] Kumar AN. Perinatal management of common neonatal thoracic lesions [J]. *Indian J Pediatr*, 2008, 75(9): 931-937.

(收稿日期:2016-04-13)

编辑:宋文颖