

儿童塑性性支气管炎临床研究进展

蔡 洸¹, 刘 庆¹, 宋建刚¹, 周 雪¹, 冯雨鑫¹, 李元霞^{2*}

¹延安大学医学院, 陕西 延安

²延安大学附属医院儿科, 陕西 延安

收稿日期: 2024年12月27日; 录用日期: 2025年1月21日; 发布日期: 2025年1月30日

摘 要

塑性性支气管炎(Plastic Bronchitis, PB)是一种罕见但危及生命的呼吸系统疾病, 其特征是支气管树状内源性异物部分或全部阻塞气道, 引起患儿的肺通气功能障碍, 如果缺乏有效的治疗, 远期可能会导致闭塞性细支气管炎(Bronchiolitis Obliterans BO)、支气管扩张、肺气肿等。本文旨在探讨目前临床对于诊断和治疗塑性性支气管的方法, 从而更好地认识塑性性支气管炎, 为诊断和治疗塑性性支气管炎提供参考。

关键词

塑性性支气管炎, 儿童, 纤维支气管镜, 支气管肺泡灌洗术

Progress in Clinical Research on Plastic Bronchitis in Children

Long Cai¹, Qing Liu¹, Jiangang Song¹, Xue Zhou¹, Yuxin Feng¹, Yuanxia Li^{2*}

¹Medical College of Yan'an University, Yan'an Shaanxi

²Department of Paediatrics, Affiliated Hospital of Yan'an University, Yan'an Shaanxi

Received: Dec. 27th, 2024; accepted: Jan. 21st, 2025; published: Jan. 30th, 2025

Abstract

Plastic Bronchitis (PB) is a rare but life-threatening respiratory disease, characterized by the partial or complete obstruction of the airways by endogenous foreign bodies in the bronchial tree, causing pulmonary ventilation dysfunction in children. If not effectively treated, it may lead to long-term complications such as Bronchiolitis Obliterans (BO), bronchiectasis, and emphysema. This paper aims to explore the current clinical methods for diagnosing and treating Plastic Bronchitis, in order

*通讯作者。

文章引用: 蔡洸, 刘庆, 宋建刚, 周雪, 冯雨鑫, 李元霞. 儿童塑性性支气管炎临床研究进展[J]. 临床医学进展, 2025, 15(1): 2259-2263. DOI: 10.12677/acm.2025.151296

to better understand the disease and provide references for its diagnosis and treatment.

Keywords

Plastic Bronchitis, Children, Fiberoptic Bronchoscopy, Bronchoalveolar Lavage

Copyright © 2025 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 引言

塑型性支气管炎(Plastic Bronchitis, PB)又称纤维素性支气管炎,是一种少见的呼吸系统疾病,好发于2~12岁儿童的临床急症,该疾病常由于各种病因导致内生性支气管管型局部或广泛堵塞气管支气管,影响肺通气功能[1]-[3],如果患儿未接受有效的治疗,该疾病可能进展为支气管阻塞、通气功能障碍,反复呼吸道感染,甚至遗留闭塞性细支气管炎(Bronchiolitis Obliterans)、支气管扩张、肺气肿等,影响远期预后。由于起病迅速,临床表现非特异性,易引起延误诊断。PB目前仍不确定,一项研究表明,儿童PB的患病率约为6.8/100,000 [4]。

目前,文献表明PB的发作与多种疾病之间存在相关性,包括术后先天性心脏病、肺部炎症和感染、肺部淋巴系统异常等合并症[1]。近年来,肺炎支原体(Mycoplasma Pneumoniae, MP)感染所致的PB逐渐增多[5][6],被认为是PB中除病毒外的主要病原体[5],此说法在不同的文献中均可得到相同结论,来自不同的单中心机构研究表示,MP是导致PB产生的主要病因,其次是腺病毒和流感病毒,而细菌、真菌和其他病原体的导致PB的概率则较低[7]-[9]。

关于PB的最早描述来自于医学家、解剖学家Galen描述的患者咳出血管样管型物。后普遍将其命名为塑型性支气管炎,1997年Seear在病理学层面将PB分为两类:I型(炎症型)和II型(无细胞型),前者特征是形成高度细胞炎性管型,主要是嗜酸性粒细胞,通常与哮喘、囊性纤维化、非囊性纤维化支气管扩张、镰状细胞病和烟雾吸入等疾病有关,后者则是由纤维蛋白和粘蛋白组成的脱细胞物质组成,通常与先天性心脏病的术后矫正有关[10]。国内PB文献报告病理多为I型,考虑与国内近年MP感染大流行相关,同时也有文献指出MP感染继发的PB属于I型[11],该结论与国内PB病理研究结果相吻合。本文结合国内外相关文献,对PB的发病原因及分型、诊断和治疗三个方面进行阐述。

2. PB 发病原因及分型

2.1. I型塑型性支气管炎

据Seear的描述,塑型性支气管炎的I型主要由纤维蛋白管型和致密的嗜酸性粒细胞性浸润组成。此类PB通常是由于感染(例如支原体、腺病毒等病原体感染[1])或过敏,甚至镰状细胞病等引起,发病机制先为多种炎性细胞浸润和炎症介质的产生,从而导致气管黏膜的导致气管粘膜充血、水肿、管腔坏死和阻塞和粘膜纤毛清除率降低[12]。I型PB在钟等人的研究中,被认为是炎症刺激导致气管粘膜损伤、坏死、粘液分泌增加,形成粘液栓以阻塞气道并加速管型形成[13],这与Caruthers等人认为PB的形成原因之一是粘膜完整性和肺泡毛细血管屏障破裂,蛋白质物质漏出的观点相同。在不同的研究中,支原体、腺病毒、呼吸道合胞病毒以及更多暂未被发掘的病原体,均逐渐被证实会导致PB的产生(I型),所以似乎可以认为导致肺部出现炎性渗出物以及支气管黏膜的破坏的疾病,均有并发PB的可能。

2.2. II型塑性性支气管炎

II型在 Seear 的分类中,被认为是“无细胞型”,塑型物主要由粘蛋白组成的管型组成,很少或没有细胞浸润[10],之后随着越来越多的 PB 被报道,其中很大一部分在病理上被分为II型 PB 的病例来自于 Fontan 术后,而在 Glenn 分流、法洛四联症修复、动脉转位手术和其他心脏手术后, PB 却十分罕见[14]。在 Languepin 对于心脏病儿童支气管管型的研究中[15],他考虑了肺淋巴异常的因素,在 3 例有免疫缺陷及肺淋巴异常的病人中,塑型物成分中包含淋巴细胞和脂质,在没有与心脏病相关的先天性肺或弥漫性淋巴发育不良的情况下,导致支气管管型形成的主要因素似乎是支气管周围淋巴管的手术创伤、胸膜粘连和高体循环静脉压。这些患者的预后较差,治疗的可能性有限,且肠淋巴管扩张症被认为是 Fontan 手术后儿童 PLE 的起始因素[16]。Llona 在其 2021 年的论文中观察到无 CHD (先天性心脏病)患者的病程存在差异,例如 PB 首次发作的年龄更高,考虑为免疫缺陷及淋巴紊乱的作用所致,这与彭使用肺炎支原体诱导的塑性支气管炎小鼠模型的建立中的研究结果(淋巴管损伤与该病理密切相关)相似[17]。

3. PB 的诊断

PB 的诊断相对于其未能确定的发病原因而言,则被广泛认同为依赖于软/硬式支气管镜下诊断,因为它不仅能直观地观察到肺内的塑型物,同时也是治疗塑性性支气管炎的金标准(镜下取出塑型物)[18][19]。

也有不同学者,旨在通过其他方法来判断患儿是否已经发生 PB 或作为接受支气管镜治疗的依据。在实验室检查中,一些研究发现,对发热峰、中性粒细胞比值、血小板计数、IL-6、LDH 等临床指标的综合评价有助于预测重症肺炎支原体肺炎(MPP)是否会并发 PB [13] [20]。而在非实验室检查中,影像学表现则被认为对 PB 诊断和介入治疗评估更有价值。一旦患者在短时间内出现高热、咳嗽和呼吸困难等临床表现,且胸部影像学显示肺不张或胸腔积液,特别检测到与 PB 密切相关的病原体(如 MP 和一些呼吸道病毒)为阳性,应考虑 PB 的可能性[19]。此外,张宁等人考虑了 MRI 在 PB 诊断中的应用价值,通过研究发现 T2WI-fs 混杂高信号可作为 PB 的特征性表现, MRI 诊断儿童 PB 的准确度为 91.39%, PB 容易发生在大叶性肺实变的情况中,常规 MRI 在肺实变的检查中判断存在儿童 PB 具有特征性表现,可以作为患儿行支气管镜灌洗术的有力证据[21]。而在复发性 PB 中,哮喘以及先天性心脏病则被认为是其危险因素[14] [22],考虑为反复的慢性气道炎症及淋巴紊乱所致。

4. PB 的治疗

目前支气管镜干预是治疗 PB 的重要手段,通过支气管镜去除管型是缓解气道阻塞的最有效方法[18] [19] [23] [24]。

其次,也有其他学者期望从雾化吸入药物,来达到预防或裂解塑型物的目的,其中, Kumar 等人在他们记录的两例病例中证明了雾化 N-乙酰半胱氨酸在避免哮喘引起的塑性支气管炎再次出现方面的有效性[25],组织纤溶酶原激活剂(tPA)和尿激酶吸入可能是裂解与先天性心脏病有关的纤维蛋白组织管型的替代方法;然而,当存在哮喘或相关原因时,它们可能不是一种有用的干预措施[26]。尽管通过雾化吸入 tPA 的有效性和安全性已经得到验证,但效果却并不尽如人意。此外, Rubin 发现雾化肝素也已成功用于铸型裂解;然而,目前尚不清楚其作用机制,但相比于 tPA,它的价格更低廉,且对呼吸道的刺激也更小[2]。在I型 PB 中,目前已被证实长期使用低剂量皮质类固醇和大环内酯类药物在减少塑型物形成方面显示出良好的作用[27]。

事实上,塑型物尽管像树一样在支气管中形成,但是部分塑型物,在进行支气管镜镜下取出的过程中,可能会因其过脆而断裂,这就导致一部分患者难以完整的去除塑型物,而大多数则可以通过光学镊子和硬式抽吸取出[28],个别报告还提到了冷冻提取[27]的使用。冷冻探针是去除嗜酸性粒细胞性支气管

管型的重要工具,可从气管支气管树中去除物质,包括异物、血凝块和黏液栓[29][30]。该方法在高压下使用液化气体(制冷剂),通常是一氧化二氮或二氧化碳,通过导管输送到低温探针的尖端,在那里冻结至低至-40℃的温度。低温探针紧紧粘附在它所接触的物体上,尤其是那些含水量很大的物体。在嗜酸性粒细胞性塑料性支气管炎的情况下,使用冷冻探针可能比使用其他工具(如镊子和抽吸)更有效且更省时[31]。

5. 总结与展望

PB 从第一次被 Galen 发现后至今,正在逐渐走进大众的视野,尤其在近几年肺炎支原体的暴发性流行下,儿童患有 PB 的病例数量越来越多,所以我们应该提高对 PB 的研究及认知水平。PB 的诊断依赖于支气管镜镜下直接诊断,在那些需要行支气管镜肺泡灌洗术的患儿,如大叶性肺炎,往往是术中才发现肺内已经产生塑型。患儿行支气管镜的指征,是一个值得研究的问题,这更像是探讨 PB 形成的高危因素,已经有诸多研究来探索这一点,无论是实验室检查(如 D-2 聚体)或影像学检查(CT 或 MRI),亦或是并发症(胸腔积液、肺不张)。治疗上,虽然支气管镜下去除为金标准,但仍存在塑型物因脆性过高断裂在肺内的问题,这一障碍未来则可以依靠冷冻探针等新技术得以解决。目前单单依靠抗感染和抗炎治疗,并不足以迅速缓解 PB 患儿的症状,扩大对 PB 病理生理机制的理解对于设计有针对性的治疗干预措施至关重要。

参考文献

- [1] Patel, N., Patel, M., Inja, R., *et al.* (2021) Plastic Bronchitis in Adult and Pediatric Patients: A Review of Its Presentation, Diagnosis, and Treatment. *Missouri Medicine*, **118**, 363-373.
- [2] Rubin, B.K. (2016) Plastic Bronchitis. *Clinics in Chest Medicine*, **37**, 405-408. <https://doi.org/10.1016/j.ccm.2016.04.003>
- [3] 田杰, 金玉, 刘素琴. 儿童塑型性支气管炎研究进展[J]. 国际医药卫生导报, 2022, 28(6): 805-808.
- [4] Kunder, R., Kunder, C., Sun, H.Y., Berry, G., Messner, A., Frankovich, J., *et al.* (2013) Pediatric Plastic Bronchitis: Case Report and Retrospective Comparative Analysis of Epidemiology and Pathology. *Case Reports in Pulmonology*, **2013**, Article ID: 649365. <https://doi.org/10.1155/2013/649365>
- [5] 焦安夏, 马渝燕, 饶小春, 等. 儿童肺炎支原体肺炎细菌性肺炎所致塑型性支气管炎 15 例临床分析[J]. 中国循证儿科杂志, 2010, 5(4): 294-298.
- [6] 郭永盛, 邹映雪, 翟嘉, 等. 73 例儿童I型塑型性支气管炎临床特征分析[J]. 天津医科大学学报, 2017, 23(5): 422-425.
- [7] Huang, F., Gu, W., Diwu, J., Zhang, X., He, Y., Zhang, Y., *et al.* (2023) Etiology and Clinical Features of Infection-Associated Plastic Bronchitis in Children. *BMC Infectious Diseases*, **23**, Article No. 588. <https://doi.org/10.1186/s12879-023-08529-w>
- [8] Wang, L., Wang, W., Sun, J., Ni, S., Ding, J., Zhu, Y., *et al.* (2020) Efficacy of Fiberoptic Bronchoscopy and Bronchoalveolar Lavage in Childhood-Onset, Complicated Plastic Bronchitis. *Pediatric Pulmonology*, **55**, 3088-3095. <https://doi.org/10.1002/ppul.25016>
- [9] Ntiamoah, P., Mukhopadhyay, S., Ghosh, S. and Mehta, A.C. (2021) Recycling Plastic: Diagnosis and Management of Plastic Bronchitis among Adults. *European Respiratory Review*, **30**, Article 210096. <https://doi.org/10.1183/16000617.0096-2021>
- [10] Seear, M., Hui, H., Magee, F., Bohn, D. and Cutz, E. (1997) Bronchial Casts in Children: A Proposed Classification Based on Nine Cases and a Review of the Literature. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, **155**, 364-370. <https://doi.org/10.1164/ajrccm.155.1.9001337>
- [11] 翟嘉, 邹映雪, 张文双, 等. 儿童塑型性支气管炎 53 例临床回顾分析[J]. 中国实用儿科杂志, 2016, 31(3): 211-214.
- [12] Yuan, L., Huang, J., Zhu, Q., Li, M. and Zhuo, Z. (2020) Plastic Bronchitis Associated with Adenovirus Serotype 7 in Children. *BMC Pediatrics*, **20**, Article No. 268. <https://doi.org/10.1186/s12887-020-02119-4>
- [13] Zhong, H., Yin, R., Zhao, R., Jiang, K., Sun, C. and Dong, X. (2021) Analysis of Clinical Characteristics and Risk Factors of Plastic Bronchitis in Children with Mycoplasma Pneumoniae Pneumonia. *Frontiers in Pediatrics*, **9**, Article 735093. <https://doi.org/10.3389/fped.2021.735093>

- [14] Grutter, G., Di Carlo, D., Gandolfo, F., Adorisio, R., Alfieri, S., Michielon, G., *et al.* (2012) Plastic Bronchitis after Extracardiac Fontan Operation. *The Annals of Thoracic Surgery*, **94**, 860-864. <https://doi.org/10.1016/j.athoracsur.2012.04.043>
- [15] Languepin, J., Scheinmann, P., Mahut, B., Le Bourgeois, M., Jaubert, F., Brunelle, F., *et al.* (1999) Bronchial Casts in Children with Cardiopathies: The Role of Pulmonary Lymphatic Abnormalities. *Pediatric Pulmonology*, **28**, 329-336. [https://doi.org/10.1002/\(sici\)1099-0496\(199911\)28:5<329::aid-ppul4>3.0.co;2-k](https://doi.org/10.1002/(sici)1099-0496(199911)28:5<329::aid-ppul4>3.0.co;2-k)
- [16] Madsen, P., Shah, S. and Rubin, B. (2005) Plastic Bronchitis: New Insights and a Classification Scheme. *Paediatric Respiratory Reviews*, **6**, 292-300. <https://doi.org/10.1016/j.prrv.2005.09.001>
- [17] Jin, P., Zhao, L., Zhang, T., Di, H. and Guo, W. (2024) Establishment of a Mouse Model of Mycoplasma Pneumoniae-Induced Plastic Bronchitis. *Microorganisms*, **12**, Article 1132. <https://doi.org/10.3390/microorganisms12061132>
- [18] Majdalany, B.S., Khayat, M., Sanogo, M.L., *et al.* (2018) Direct Trans-Cervical Endolymphatic Thoracic Duct Stent-Graft for Plastic Bronchitis. *Lymphology*, **51**, 97-101.
- [19] Chen, X., Wu, S., Huang, Z., Lin, Y., Xu, J., Xu, Q., *et al.* (2024) Plastic Bronchitis in Children: A Review of 55 Cases over a 10-Year Period. *International Journal of Pediatrics*, **2024**, Article ID: 9271324. <https://doi.org/10.1155/2024/9271324>
- [20] Zhao, L., Zhang, T., Cui, X., Zhao, L., Zheng, J., Ning, J., *et al.* (2022) Development and Validation of a Nomogram to Predict Plastic Bronchitis in Children with Refractory *Mycoplasma pneumoniae* Pneumonia. *BMC Pulmonary Medicine*, **22**, Article No. 253. <https://doi.org/10.1186/s12890-022-02047-2>
- [21] 张宁, 孙静涛, 李静, 等. 儿童塑性性支气管炎 MRI 应用价值[J]. 中国实验诊断学, 2024, 28(9): 1068-1071.
- [22] Kallam, E.F., Kasi, A.S., Patki, R., Silva, G.L., Simon, D.M., Caltharp, S., *et al.* (2021) Bronchoscopic Interventions for Plastic Bronchitis in Children without Structural Heart Disease. *European Journal of Pediatrics*, **180**, 3547-3554. <https://doi.org/10.1007/s00431-021-04161-5>
- [23] Wang, L., Wang, W., Sun, J., Ni, S., Ding, J., Zhu, Y., *et al.* (2020) Efficacy of Fiberoptic Bronchoscopy and Bronchoalveolar Lavage in Childhood-Onset, Complicated Plastic Bronchitis. *Pediatric Pulmonology*, **55**, 3088-3095. <https://doi.org/10.1002/ppul.25016>
- [24] 王文磊, 李芳. 纤维支气管镜在儿童塑性性支气管炎诊治中的价值研究[J]. 重庆医学, 2016, 45(32): 4490-4492.
- [25] Kumar, A., Jat, K.R., Srinivas, M. and Lodha, R. (2018) Nebulized N-Acetylcysteine for Management of Plastic Bronchitis. *Indian Pediatrics*, **55**, 701-703. <https://doi.org/10.1007/s13312-018-1363-8>
- [26] Robinson, M., Smiley, M., Kotha, K. and Udoji, T. (2016) Plastic Bronchitis Treated with Topical Tissue-Type Plasminogen Activator and Cryotherapy. *Clinical Pediatrics*, **55**, 1171-1175. <https://doi.org/10.1177/0009922815614358>
- [27] Kim, E.J., Park, J.E., Kim, D.H. and Lee, J. (2012) Plastic Bronchitis in an Adult with Asthma. *Tuberculosis and Respiratory Diseases*, **73**, 122-126. <https://doi.org/10.4046/trd.2012.73.2.122>
- [28] Soyer, T., Yalcin, Ş., Emiralioğlu, N., Yilmaz, E.A., Soyer, O., Orhan, D., *et al.* (2016) Use of Serial Rigid Bronchoscopy in the Treatment of Plastic Bronchitis in Children. *Journal of Pediatric Surgery*, **51**, 1640-1643. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2016.03.017>
- [29] Sriratanaviriyakul, N., Lam, F., Morrissey, B.M., Stollenwerk, N., Schivo, M. and Yoneda, K.Y. (2015) Safety and Clinical Utility of Flexible Bronchoscopic Cryoextraction in Patients with Non-Neoplasm Tracheobronchial Obstruction. *Journal of Bronchology & Interventional Pulmonology*, **22**, 288-293. <https://doi.org/10.1097/lbr.0000000000000203>
- [30] Moslehi, M.A. (2020) Foreign Body Retrieval by Using Flexible Cryoprobe in Children. *Journal of Bronchology & Interventional Pulmonology*, **28**, 103-106. <https://doi.org/10.1097/lbr.0000000000000698>
- [31] Gipsman, A.I., Feld, L., Johnson, B., Needleman, J.P., Boas, H., Lin, N., *et al.* (2023) Eosinophilic Plastic Bronchitis: Case Series and Review of the Literature. *Pediatric Pulmonology*, **58**, 3023-3031. <https://doi.org/10.1002/ppul.26650>