

涎腺霍奇金淋巴瘤 1 例

陈敏¹ 郑美君² 李文²

[关键词] 腮腺;霍奇金淋巴瘤;淋巴结炎;诊断
doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2017.23.018
[中图分类号] R782.7 [文献标志码] D

Hodgkin's lymphoma of salivary gland: a case report

Summary Hodgkins lymphoma (HL) of salivary gland is extremely rare. We reported a bilateral HL in a female of 58 years old, whose main clinical complaint was bilateral enlargement of parotid gland and cervical lymph nodes. The clinical symptoms were relieved after intermittent treatment by anti-inflammatory drugs and traditional Chinese herbs resulted in misdiagnosis of chronic lymphadenitis. The postoperative pathological diagnosis was HL of parotid gland, submandibular gland and cervical lymph nodes. It implies that lymphoma shall also be take into consideration even if anti-inflammatory drugs and Chinese traditional herbs have treatment effect on a parotid gland mass.

Key words parotid gland; Hodgkin's lymphoma; lymphadenitis; diagnosis

1 病例报告

患者,女,58岁,因“发现双侧腮腺肿大、颈部包块伴间断发热1月余”于2013年4月15日入院。患者1个多月前无明显诱因出现双侧腮腺肿大及颈部包块(图1)。院外输液及中药抗炎治疗(具体药物不详)后,颈部包块多数消失,但双侧腮腺区肿胀未消退,伴压痛、偶尔发热,不伴盗汗、消瘦。查体:腮腺肿大较均匀,质硬,压痛,挤压腺体时导管口无明显脓性分泌物。颌下腺肿大及压痛均不明显。颈部多个活动结节,约蚕豆大小,轻微压痛。辅助检查:纤维鼻咽喉镜检查除双侧鼻腔、鼻咽部大量干痂外,未见确切新生物。CT示双侧腮腺、颌下腺体积增大,其内密度不均匀,以腮腺最为明显,CT增强扫描强化均匀;未见确切涎腺结石征象;颈部淋巴结明显增多,最大右侧2.0 cm×1.3 cm,左侧2.4 cm×1.2 cm,CT增强扫描明显强化(图2)。入院诊断为:①腮腺及颈部慢性淋巴结炎?②淋巴瘤?患者入院后第2天,体温升高至38.2℃,伴双侧腮腺区、颌下区红肿,给予抗生素静脉滴注,3 d后患者包块大小及压痛无减轻,体温36.5~38.2℃。入院后3次血常规检查,白细胞总数正常、淋巴细胞百分率和淋巴细胞绝对值均减少,高热时血培养呈阴性。患者已证实患鼻窦炎、中耳乳突炎等多种慢性疾病,本次要求明确腮腺及颈部包块诊断。完善术前检查后未见绝对手术禁忌证,在全身麻醉下行右侧腮腺浅叶切除术+右侧颌下腺切除+右颈淋巴结活检术。术中见右侧腮腺弥漫性肿大,与皮肤粘连紧密;腮腺内多个淋巴

样结节,部分融合边界不清;颌下腺稍大;数枚颈部淋巴结肿大,最大约3 cm×2 cm。术中冷冻腮腺、颌下腺内见大量大小不等的淋巴样细胞浸润,部分具有异型性,右颈淋巴结结构部分破坏,可见大小不等的淋巴样细胞聚集。术后继续抗炎对症治疗,切口一期愈合,体温正常。术后腮腺、颌下腺及右侧颈部淋巴结免疫组织化学染色示:异型大淋巴瘤样细胞为CD30(+),CD15(-),LCA(-),EBV(+),ALK-1(-),GB(+),CD10(-),CD20(±),BCL-6(+),MUM-1(+),Ki67阳性率约30%,背景小淋巴细胞为CD3ε(+),IgH基因重排提示有克隆性重排带,IgK基因重排未见克隆性重排带;病理学诊断为经典型霍奇金淋巴瘤(Hodgkin's lymphoma, HL),混合细胞型(WHO, 2008)(图3)。建议患者出院后到肿瘤科继续治疗。术后3年患者仍生存,间断用药(具体药物不详),生活质量较差,右侧面颈部肿瘤未见复发,左侧面颈部腮腺区及颈部病情无明显加重。随访3年后失访。

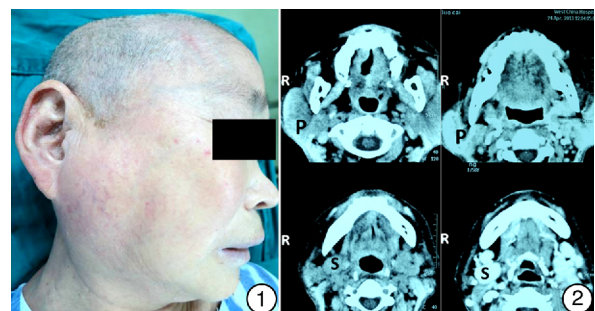
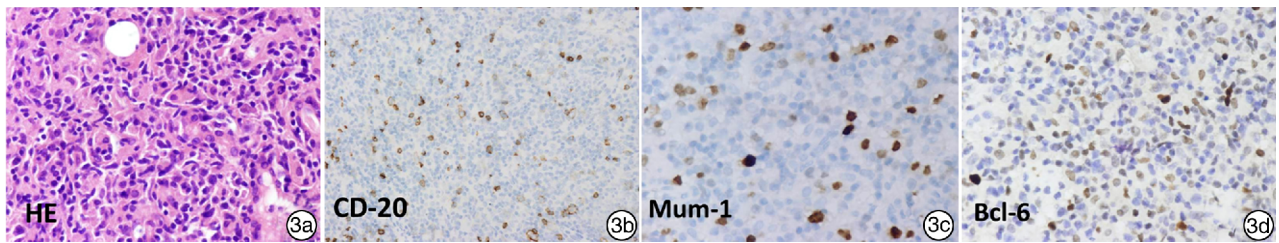


图1 患者右侧腮腺区明显肿胀,腮腺皮肤真皮下毛细血管网扩张明显;图2 CT所示

2 讨论

恶性淋巴瘤分为HL和非霍奇金淋巴瘤

¹成都上锦南府医院(成都,610041)
²四川大学华西医院耳鼻咽喉头颈外科
通信作者:李文,E-mail:church.ent.wc@163.com



3a:腮腺正常结构破坏,在小淋巴细胞背景下较多变异大淋巴样细胞(苏木精-伊红染色 $\times 400$);3b~d:免疫组织化学染色大淋巴样细胞 CD20 染色阳性($\times 200$),Bcl-6 和 Mum-1 染色阳性($\times 400$)。

图 3 腮腺肿瘤组织病理

(Non-hodgkin's lymphoma, NHL) 两大类,其中 NHL 占头颈部恶性淋巴瘤的 75%。Reed-sternberg 细胞(RS 细胞)及其变异型是 HL 真正的肿瘤细胞。最新检测证明 RS 细胞主要来源于 B 淋巴细胞。HL 在欧美各国发病率高,在我国发病率较低,大多数患者并无明显的全身症状,初次就诊常被误诊。有 20%~30% 的患者表现为发热、盗汗、消瘦;发热可低热,有时为间歇高热(Pel-Ebstein 热),此外可有瘙痒、乏力等表现。HL 病变往往从一个或一组淋巴结开始,逐渐向邻近的淋巴结及远处扩散;原发于淋巴结外的 HL 少见,结外型恶性淋巴瘤的临床表现及组织学形态多样化,容易与临床上其他疾病相混淆。早期淋巴结肿大无粘连,可活动,淋巴结互相粘连,形成结节状巨大肿块。如淋巴结侵入邻近组织则不易推动。本例术中所见及冷冻病理结果提示腮腺区 HL 已经向淋巴结外侵袭,致腮腺内病变弥散,整个腮腺成为一个巨大肿块。

腮腺淋巴瘤发病率低,病理类型多为 B 细胞型 NHL, 占所有原发性结外 NHL 的 5%,涎腺肿瘤的 2%。涎腺 HL 极为罕见。从几个大样本的涎腺肿瘤研究资料看,HL 占涎腺淋巴瘤的 4%,以结节型、淋巴细胞为主型,并且都发生在腮腺或腮腺内淋巴结,因此,严格来讲,不是所有报道的腮腺 HL 都是涎腺原发性结外淋巴瘤。本文所报道的颌下腺 HL 病例是本院病理资料库数十年中唯一 1 例有据可查的颌下腺 HL,这极大提高了我们对颌下腺淋巴瘤病理类型的认识。罕见情况下,HL 亦可以来源于腮腺 Warthin's 瘤^[1-4]。HL 和 NHL 患者的颈部淋巴结病变均常见,前者常伴有纵隔淋巴结病变,后者伴有腹部淋巴结病变^[5-6]。

腮腺区包块大致可分为肿瘤、淋巴结炎症及腮腺腺体炎症。腮腺涎腺来源肿瘤病理类型较多,术前针吸活检或术中冷冻对其良、恶性的判断比较困难。术前影像学检查如果发现肿瘤边界不清,提示恶性可能性大。腺淋巴瘤患者多数有长期吸烟史。腮腺区淋巴结结核一般伴有结节中央呈干酪样坏死,病理检查为肉芽肿性炎症,但抗酸染色阴性,

PCR 阴性的患者也很多见,导致结核诊断困难。腮腺淋巴瘤常表现为多发结节,边缘光整,密度均匀,增强后中度强化,常伴颈部淋巴结肿大,但上述特点不具有特异性。一般情况下,腮腺良性肿瘤不会侵及面神经,恶性肿瘤常侵及面神经。但腮腺区淋巴瘤一般不会侵及面神经,瘤体包膜完整。腮腺淋巴瘤的确诊依靠常规组织病理学、免疫组织化学和分子病理学诊断。

涎腺淋巴瘤的预后取决于组织学类型和临床分期。早期 HL 局限性病变,自然病程缓慢,预后好,以化疗为主的治疗完全缓解率可达 90%,10 年生存率约 90%;但晚期 HL 患者预后差。由于本例患者入院前短时间内曾间断进行抗炎药物和中药治疗,因此并不符合 HL 的化疗方案。“颈部包块多数消失”是否与包块中反应性增生的淋巴细胞等非肿瘤成分有关?还是中药对淋巴瘤的生长具有抑制作用?有待更多的病例研究证实。涎腺 NHL 中,黏膜相关组织淋巴瘤预后较好;T 细胞淋巴瘤和结外 NK/T 细胞淋巴瘤预后不佳;结外边缘区 B 细胞淋巴瘤可能是最常见的真正来自于涎腺的淋巴瘤,常与舍格伦综合征相关,一般认为无论治疗与否,通常是无害的肿瘤,并不导致明显的病态和死亡,但有的病例以后可能发展为广泛的涎腺外淋巴瘤或淋巴结 B 细胞淋巴瘤。腮腺 HL 与 NHL 也可以在同一腮腺组织内存在^[7]。

总之,腮腺区淋巴瘤的诊治较为复杂,类似本例患者,术前诊断不明确,术中打开后发现腮腺多个淋巴结增大,此时应与假性腮腺炎即腮腺区淋巴结炎和腮腺淋巴瘤相鉴别,进一步完善免疫组织化学或基因检测等病理诊断,为患者后续治疗方式的选择提供充分的依据^[1-2]。术中冷冻高度怀疑淋巴瘤者,应尽量减少手术创伤。因为淋巴瘤是全身性疾病,主要依靠确诊后的综合治疗。对于术中冷冻的疑难病例,必要时多处取材也是合理的。即使如此,切除腮腺浅叶也已经足够,因为腮腺区淋巴结主要位于腮腺浅叶及面神经分支平面。大样本回

(下转第 1857 页)

- [9] 刘文静,邱建新. 大前庭水管综合征患者多频听觉稳态反应的特点[J]. 安徽医科大学学报, 2010, 45(4): 542—544.
- [10] 曾祥丽,巫爱霞,王树芳,等. 多频听性稳态诱发反应的表象分析及稳定性探讨[J]. 临床耳鼻咽喉科杂志, 2006, 20(10): 438—440.
- [11] SMALL S A, STAPELLS D R. Multiple auditory steady-state responses to bone-conduction stimuli in adults with normal hearing[J]. J Am Acad Audiol, 2005, 16: 172—183.
- [12] PICTON T W, JOHN M S. Avoiding electromagnetic artifacts when recording auditory steady-state response s[J]. J Am Acad Audiol, 2004, 15: 541—554.
- [13] 曾国庆,宋江顺,刘文婷,等. 单频稳态诱发反应的可靠性研究[J]. 现代生物医学进展, 2015, 15(2): 270—273.
- [14] 李倩庆,宋江顺,曾国庆,等. 听性脑干诱发反应(C-ABR)结合单刺激听觉稳态诱发反应(s-ASSR)对正常青年人纯音听阈(PTA)相关性研究[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2013, 27(16): 877—880.
- [15] BECK D L, SPEIDEL D, et al. Auditory steady-state response(ASSR): a beginner's guide[J]. Hear Rev, 2007, 14: 34—34.
- [16] 魏凡钦,陆钊群,张官萍,等. 成人频率特异性 chirp 听性稳态反应与纯音听阈测试的相关性研究[J]. 中华耳科学杂志, 2012, 10(12): 451—454.
- [17] 刘文婷,宋江顺,谢景华,等. 幼儿 chirp-ASSR 与纯音听阈测试的相关性研究[J]. 中华耳科学杂志, 2016, 14(2): 191—194.
- [18] 史伟,郭维,王秋菊. 窄带 CE-Chirp 声诱发的 ASSR 在婴儿听力筛查及诊断中的应用[J]. 听力学及言语疾病杂志, 2011, 19(1): 11—17.
- [19] 王漾,彭丹丹,叶放蕾. Tb-ABR 与 ASSR 在小儿听力评估中的应用[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2015, 29(10): 906—908.
- [20] 应俊,高小榕. 面向听觉神经系统检测的听觉稳态反应研究[D]. 北京:清华大学医学院生物医学工程, 2013: 49—62.

(收稿日期:2017-08-06)

(上接第 1853 页)

研究^[8],HL 患者发生颈部淋巴瘤或其他癌症的风险大为增加。本例患者颈部淋巴结病理类型为 HL,虽然采用抗炎或中药治疗对涎腺肿大有效,但仍需考虑淋巴瘤的可能性。

参考文献

- [1] 周小鸽,陈辉树,译. 造血与淋巴组织肿瘤病理学和遗传学[M]. 北京:人民卫生出版社,2006:268—286.
- [2] MASUDA M, SEGAWA Y, JOE A K, et al. A case of primary Hodgkin's lymphoma of the parotid gland [J]. Auris Nasus Larynx, 2008, 35: 440—442.
- [3] AAIMY A, WILD V, MARKL B, et al. Intraparotid classical and nodular lymphocyte-predominant Hodgkin lymphoma: pattern analysis with emphasis on associated lymphadenoma-like proliferations [J]. Am J Surg Pathol, 2015, 39: 1206—1212.
- [4] SHUM J W, EMMERLING M, LUBEK J E, et al. Parotid lymphoma: a review of clinical presentation

and management[J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol, 2014, 118: e1—5.

- [5] URQUHART A, BERG R. Hodgkin's and non-Hodgkin's lymphoma of the head and neck[J]. Laryngoscope, 2001, 111: 1565—1569.
- [6] VEGA F, LIN P, MEDEIROS L J. Extranodal lymphomas of the head and neck[J]. Ann Diagn Pathol, 2005, 9: 340—350.
- [7] URANO M, MIZOGUCHI Y, NISHIO T, et al. Composite lymphoma arising in the parotid gland: a case report [J]. Auris Nasus Larynx, 2004, 31: 89—93.
- [8] CHOWDHRY A K, MCHUGH C, FUNG C, et al. Second primary head and neck cancer after Hodgkin lymphoma: a population-based study of 44,879 survivors of Hodgkin lymphoma [J]. Cancer, 2015, 121: 1436—1445.

(收稿日期:2017-04-01)