

## 腮腺区第一鳃裂囊肿癌变 1 例

卓路芳<sup>1</sup> 陈哲<sup>2</sup> 李文<sup>1</sup> 薛莲<sup>3</sup> 寿铸<sup>4</sup>

[关键词] 第一鳃裂囊肿;癌;腮腺;诊断

DOI:10.13201/j.issn.2096-7993.2021.11.016

[中图分类号] R739.8 [文献标志码] D

### Cancerization of first branchial cleft cyst in the parotid gland: one case report

**Summary** A rare case of branchiogenic carcinoma from first cleft branchial cyst in the parotid gland is reported. An elderly male patient was admitted to the hospital presented with a mass accompanying with swelling and pain in the right parotid area for 5 days. Total right parotidectomy including the tumor resection and selective neck dissection were performed under general anesthesia. A thick-walled cyst containing necrotic tissue in the parotid gland was found. Postoperative histopathology showed that the tumor contained squamous epithelium and pseudostratified columnar epithelium. The cyst epithelium had atypical hyperplasia with necrosis. Some areas were cancerous with the formation of well-differentiated squamous cell carcinoma and cancer infiltration. No metastasis was found in the cervical lymph nodes. This case was in accordance with the diagnostic criteria of cancerization of the first branchial cleft cyst.

**Key words** first branchial cyst; cancer; parotid gland; diagnosis

#### 1 病例报告

患者,男,84岁,因“右侧腮腺区肿物伴红肿疼痛5d”于2019年11月14日来院。患者述入院5d前发现右侧腮腺区一肿物,约鸡蛋大小,红肿明显,伴间歇性剧烈疼痛,无畏寒发热、面颈部麻木不适、鼓腮漏气、口角歪斜和外耳道溢液等症状。当地医院涎腺彩超提示右侧腮腺可见等、低回声混杂团块。腮腺颌下腺增强CT示右侧颈部胸锁乳突肌上缘深面占位,右侧颈部淋巴结显示,考虑鳃裂囊肿伴感染可能(图1、2)。给予输液抗感染及镇痛治疗,局部肿痛未见缓解,后转入我科。入院查体:右侧腮腺区可扪及一质韧肿物,大小约3cm×4cm,边界欠清,硬度较差,触痛明显,腮腺区皮温稍高,面颈部皮肤未见瘻口,无破溃流脓。血常规检查结果示白细胞总数 $8.05 \times 10^9/L$ ,中性分叶核粒细胞百分率61.5%,均位于正常值范围。电子鼻咽纤维喉镜检及窄带光成像(narrow band imaging, NBI)未发现鼻咽喉及口腔明显异常。基于我院此前1例腮腺区鳃裂囊肿癌变的收治经验,入院诊断为右侧鳃裂囊肿伴感染或鳃裂囊肿恶变。完善术前准备后全身麻醉下行右侧腮腺肿瘤切除+右侧腮腺全切+右侧择区颈部淋巴结清扫。术

中发现右侧胸锁乳突肌深面见约4cm×3cm×2cm大小灰褐色肿物,与右侧面神经、腮腺、胸锁乳突肌粘连,累及茎乳孔。肿瘤剖面似一壁厚不均一的囊性肿瘤,内含坏死样物(图3)。苏木精-伊红染色示肿瘤内含鳞状上皮及假复层柱状上皮,囊肿上皮呈非典型性增生伴坏死,部分区域癌变伴高分化鳞状细胞癌形成及癌浸润。右侧颈清扫淋巴结13枚呈反应性增生。免疫组织化学:肿瘤细胞呈P53(部分+),P63(+),CK7(灶性+),S-100(-),CEA(-),Ki-67(MIB-1)阳性率60%(图4~6)。FISH检测结果,未检出PLAG1基因易位。根据病理结果结合临床诊断为鳃裂囊肿癌变。术后患者鼓腮稍漏气,无明显口角歪斜及额纹消失、伸舌偏斜等面瘫表现。术后未行放疗,术后10个月内随访未发现全身其他部位与之相关原发灶,未见复发及转移。

#### 2 讨论

第一鳃裂畸形是一种并不少见的鳃源性疾病,占鳃裂畸形的1%~8%。鳃裂囊肿的囊壁内衬复层鳞状上皮或假复层柱状上皮,如鳃裂囊肿的上皮衬里发生癌变,则称为鳃裂癌<sup>[1]</sup>。2017年我科收治1例腮腺区鳃裂囊肿癌变的老年男性患者,行腮腺及肿瘤全切加选择性颈清扫术后未放疗,随访未见复发和转移<sup>[2]</sup>。此次收治的第一鳃裂囊肿癌变患者,其发病过程、临床表现和病理组织学特点与上一例存在较多共同点。鳃裂囊肿癌变临床上罕见,发病原因不明,以老年人多见,大部分累及第

<sup>1</sup>四川大学华西医院耳鼻咽喉头颈外科(成都,610041)

<sup>2</sup>中国人民解放军66168医院门诊部

<sup>3</sup>重庆市沙坪坝区人民医院耳鼻咽喉科

<sup>4</sup>重庆市渝北区人民医院耳鼻咽喉科

通信作者:李文, E-mail: church.ent.wc@163.com

二鳃裂畸形,第一鳃裂囊肿癌变临床发病则更为罕见,在病变早期常不能得到明确诊断,导致患者病程看似只有数天,其实可能达数月或更长时间。由于缺乏大样本的病例资料,第一鳃裂囊肿癌变虽然是一种恶性肿瘤,其侵袭性和远处转移能力却有待于考证。对于鳃裂囊肿癌变的诊断,目前大多数学

者广泛认可的是 Khafif 等<sup>[3]</sup>提出的鳃裂癌的诊断标准:①通过全面检查未发现患者其他部位的原发恶性肿瘤;②组织学上存在从鳃裂囊肿正常上皮、上皮异常增生至原位癌形成和癌浸润的肿瘤演化证据。本例患者符合该诊断标准。

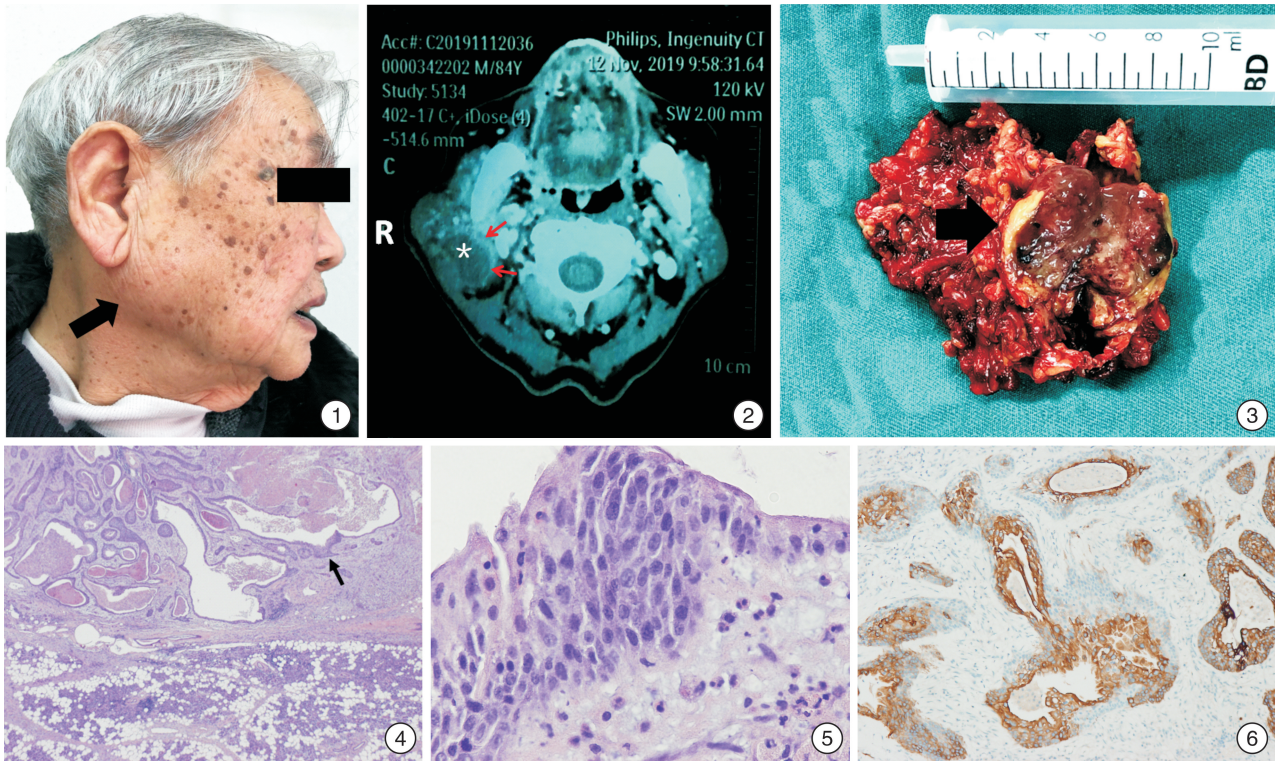


图 1 老年男性右侧腮腺区包块(黑色箭头); 图 2 腮腺区增强 CT 增强 CT 扫描示右侧腮腺区囊性肿瘤(白色星号), 肿瘤边缘不均匀强化(红色箭头); 图 3 腮腺内囊性肿瘤 腮腺内囊性肿瘤,壁厚不均,内含坏死样组织; 图 4 苏木精-伊红染色( $\times 50$ ) 肿瘤病理组织学显示复层鳞状上皮或假复层柱状上皮囊肿,上皮由正常形态向非典型增生、原位癌及浸润癌移行(黑色箭头); 图 5 苏木精-伊红染色( $\times 400$ ) 黑色箭头区放大,囊肿鳞状上皮增生,核异型、核分裂象多见; 图 6 全自动免疫组织化学( $\times 100$ ) 肿瘤组织免疫组织化学染色显示囊壁上皮细胞 CK7 染色阳性。

排除诊断在鳃裂囊肿癌变的诊断过程中非常重要。鳃裂囊肿癌变的一般临床表现、超声及 CT 检查结果均不具有特异性。但总结我院收治的 2 个病例仍有一些共同特点:①老年男性,面部老年斑明显;②病变发生在腮腺区,CT 提示病变在腮腺腺体实质内;③CT 增强扫描显示为病变边界不清的厚壁囊性病变;④腮腺区短期局部肿痛症状明显;⑤无明显发热症状及感染血象。鳃裂囊肿癌变一般需要与鳃裂囊肿感染出血、结核性淋巴结炎、囊性转移性淋巴结、Warthin's 瘤等包块内液化的病变相鉴别<sup>[2]</sup>。鳃裂囊肿伴感染时呈现出红肿热痛的炎症症状及感染血象。不明原发灶的颈部囊性转移性鳞状细胞癌与鳃裂囊肿癌变的鉴别尤其重要,因其 CT 及组织学表现与鳃裂囊肿癌变相似,需要积极寻找原发灶<sup>[4]</sup>。通常口咽部是寻找原发灶的重点解剖部位,有学者甚至提出把颈部转移

灶同侧的扁桃体切除加颈清扫作为常规的治疗方式<sup>[5]</sup>。研究表明,P16 表达阳性的口咽癌常发生颈部淋巴结转移灶的囊性变,可以把肿瘤组织 P16 阳性染色作为鉴别囊性转移性鳞状细胞癌和鳃裂源性肿瘤的鉴别依据之一<sup>[6-9]</sup>。也有研究显示,对不明原发灶颈部转移性鳞状细胞癌行人乳头状瘤病毒及 EB 病毒检测有阳性发现,提示原发灶可能来源于口咽或鼻咽<sup>[10-11]</sup>。PET-CT 是目前寻找不明原发灶的腮腺区转移性鳞状细胞癌的有效方法,但也不是所有的病例都能确立原发灶。

是否存在原发灶也容易受后续治疗或可能并无相关性的头颈部恶性肿瘤的干扰。譬如不明原发灶的颈部转移性鳞状细胞癌手术后的放疗一般会把口咽部或鼻咽部包括在内,这样可能使早期口咽部的恶性肿瘤得到治愈,从而不会有发现原发灶的机会。



相比于发生于颈部的疑似鳃裂囊肿癌变的病例,发生于腮腺内的第一鳃裂囊肿癌变更容易进行排除诊断。因为腮腺内发生的原发性鳞状细胞癌极其罕见,发生在腮腺区的鳞状细胞癌可能是不明原因的转移癌,或者是腮腺区皮肤癌向深部侵袭的结果<sup>[12]</sup>。原发性鳞状细胞癌或转移癌没有鳃裂囊肿癌变组织中具有的鳃裂囊肿的鳞状上皮或复层纤毛柱状上皮从正常结构向浸润癌移行渐变的证据,而皮肤癌可以发现表面皮肤的浸润病灶。

由于符合鳃裂癌诊断标准的病例数少,因此,鳃裂癌的治疗目前没有统一标准。已有的研究表明,鳃裂癌比头颈部的其他鳞状细胞癌有更好的预后。手术方式主要为肿瘤切除加根治性或改良根治性颈淋巴结清扫术,手术后辅助放疗可以预防复发<sup>[13]</sup>。我科收治的 2 例患者手术时均没有颈部淋巴结转移,意味着患者可能有更好的预后。至于鳃裂癌伴有颈部淋巴结转移时,是否比其他头颈部鳞状细胞癌有更好的预后则有待于病例积累和临床随访。

#### 参考文献

- [1] 施琳,申铁兵,孙勤暖,等.鳃裂癌一例[J].中华口腔医学杂志,2015,50(12):768-769.
- [2] Zeng B, Li W, Yang L, et al. Branchiogenic carcinoma in the parotid gland[J]. Chin Med J, 2019, 132(19): 2388-2389.
- [3] Khafif RA, Prichep R, Minkowitz S. Primary branchiogenic carcinoma[J]. Head Neck, 1989, 11(2): 153-163.
- [4] 黄彩平,王弘士,孔蕴毅,等.颈部囊性转移性鳞癌误诊鳃裂癌四例分析[J].中华肿瘤杂志,2004,26(10): 634-637.
- [5] Goldenberg D, Sciubba J, Koch WM. Cystic metastasis from head and neck squamous cell cancer: a distinct disease variant? [J] Head Neck, 2006, 28(7): 633-8.
- [6] Vent J, Haidle B, Wedemeyer I, et al. p16 expression in carcinoma of unknown primary: diagnostic indicator and prognostic marker[J]. Head Neck, 2013, 35(11): 1521-1526.
- [7] Kambara R, Tamai M, Horii A. A Case of Cystic Cervical Lymph Node Metastasis of HPV-positive Tonsil Cancer, Being Discriminated as the Branchiogenic Carcinoma[J]. Nihon Jibiinkoka Gakkai Kaiho, 2016, 119(2): 118-124.
- [8] Strassen U, Hofauer B, Matsuba Y, et al. Bronchogenic cancer: It still exists[J]. Laryngoscope, 2016, 126(3): 638-642.
- [9] Pai RK, Erickson J, Pourmand N, et al. p16 (INK4A) immunohistochemical staining may be helpful in distinguishing branchial cleft cysts from cystic squamous cell carcinomas originating in the oropharynx [J]. Cancer, 2009, 117(2): 108-119.
- [10] 温树信,张庆丰,王鑫.原发灶不明的颈部淋巴结转移癌诊治策略[J].临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2019, 33(11): 1014-1016.
- [11] 刘良发,袁硕卿.口咽癌诊断治疗进展[J].临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2019,33(11): 1009-1013, 1016.
- [12] Rotman A, Kerr SJ, Giddings CEB. Elective neck dissection in metastatic cutaneous squamous cell carcinoma to the parotid gland: A systematic review and meta-analysis[J]. Head Neck, 2019, 41(4): 1131-1139.
- [13] Katori H, Nozawa A, Tsukuda M. Post-operative adjuvant chemoradiotherapy with carboplatin and 5-fluorouracil for primary branchiogenic carcinoma [J]. J Laryngol Otol, 2005, 119(6): 467-469.

(收稿日期:2020-09-08)