



中国临床医学

Chinese Journal of Clinical Medicine

ISSN 1008-6358

CN 31-1794/R

颌下嗜酸性肉芽肿术后11年复发1例报告

樊启象, 李引刚, 刘艳平, 王晓龙, 衡立松, 李彦民

引用本文:

樊启象, 李引刚, 刘艳平, 等. 颌下嗜酸性肉芽肿术后11年复发1例报告[J]. 中国临床医学, 2020, 27(6): 1065–1067.

在线阅读 View online: <https://doi.org/10.12025/j.issn.1008-6358.2020.20200017>

您可能感兴趣的其他文章

Articles you may be interested in

胸腺肽 α 1对C57BL/6结节病肉芽肿模型小鼠的疗效分析

Effect of thymosin alpha 1 on C57BL/6 model mice with sarcoidosis granuloma

中国临床医学. 2018, 25(3): 396–399 <https://doi.org/10.12025/j.issn.1008-6358.2018.20180166>

黄色肉芽肿性胆囊炎超声造影影像学特征分析

Contrast-enhanced ultrasonography of xanthogranulomatous cholecystitis

中国临床医学. 2020, 27(3): 493–496 <https://doi.org/10.12025/j.issn.1008-6358.2020.20200552>

纵隔上皮样肉瘤样血管内皮细胞瘤1例报告

Mediastinum epithelioid sarcoma-like haemangioendothelioma: a case report

中国临床医学. 2018, 25(5): 852–854 <https://doi.org/10.12025/j.issn.1008-6358.2018.20171181>

Micro-CT对急性肺结核小鼠模型动态演变的监测价值

The value of micro-CT in monitoring the dynamic evolution of acute pulmonary tuberculosis in mice

中国临床医学. 2017, 24(4): 531–535 <https://doi.org/10.12025/j.issn.1008-6358.2017.20170599>

基于单中心的局部巨大乳腺癌手术切除后胸壁重建及巨大创面修复策略

Optimization strategies for thoracic wall reconstruction and repairing the huge soft-tissue defects after locally advanced breast cancer resection based on 11 years clinical experiences in a single Chinese center

中国临床医学. 2018, 25(2): 182–187 <https://doi.org/10.12025/j.issn.1008-6358.2018.20180002>

DOI:10.12025/j.issn.1008-6358.2020.20200017

颌下嗜酸性肉芽肿术后 11 年复发 1 例报告

樊启象¹, 李引刚^{2*}, 刘艳平², 王晓龙³, 衡立松³, 李彦民²

1. 浙江中医药大学附属金华中医院骨科, 金华 321017

2. 陕西中医药大学附属医院骨科, 咸阳 712000

3. 西安交通大学附属红会医院骨科, 西安 710054

〔关键词〕 嗜酸性肉芽肿; 颌下; 术后

〔中图分类号〕 R 781.34+4 〔文献标志码〕 B

Recurrence of submaxillary eosinophilic granuloma in 11 years after operation: a case report

FAN Qi-xiang¹, LI Yin-gang^{2*}, LIU Yan-ping², WANG Xiao-long³, HENG Li-song³, LI Yan-min²

1. Department of Orthopaedics, Jinhua Traditional Chinese Medicine Hospital, Zhejiang University of Traditional Chinese Medicine, Jinhua 321017, Zhejiang, China

2. Department of Orthopaedics, Affiliated Hospital of Shaanxi University of Traditional Chinese Medicine, Xianyang 712000, Shaanxi, China

3. Department of Orthopaedics, Honghui Hospital, Xi'an Jiaotong University, Xi'an 710054, Shaanxi, China

〔Key Words〕 eosinophilic granuloma; submaxillary; postoperation

嗜酸性肉芽肿(eosinophilic granuloma, EG)是以 CD1a⁺ 及 CD207⁺ 细胞异常增殖、嗜酸性细胞浸润为特征的罕见病,是朗格汉斯细胞组织细胞增生症(Langerhans cell histiocytosis, LCH)的一种亚型,好发于儿童和青少年^[1]。其病因目前尚不明确,考虑是一种自限性过敏反应或由于不明刺激物引发的自动免疫反应^[2]。临床上老年人 EG 的发病率极低,其临床及影像学表现无明显特异性,因此该病在临床诊断上尚无统一标准,易出现漏诊、误诊,误诊率达 55%^[3]。

本研究回顾性分析近期本院收治的 1 例老年人颌下 EG 术后 11 年复发,伴左侧股骨小转子 EG 并发骨折。该病例术后复发且累及股骨并发骨折,临床上极其少见,患者入院行低剂量放疗+化疗,效果良好,现报告如下。

1 病例资料

1.1 入院资料 患者,男,66 岁,因晨练踢腿时自

觉左髋关节有“折裂”声,即感疼痛难忍,不能站立,遂来我院就诊,X 线检查结果(图 1A、1B)示:左侧股骨小粗隆骨质密度减低,呈溶骨性破坏,小粗隆底部可见纵行骨折线。入院诊断:左股骨转子病理性骨折(原因待查)。查体:左侧颌下可见约 4 cm 的手术瘢痕,右侧颌下可触及 4 cm×3 cm 软组织包块,左大腿内侧压痛(++),未见红肿、热痛,屈髋明显受限。既往 11 年前因左颌下淋巴结肿块在外院行左颌下淋巴结肿瘤切除术,术后病理诊断结果为“左颌下涎腺嗜酸性肉芽肿”。实验室检查:嗜酸性细胞百分比 12.7%,嗜酸性细胞计数 $1.17 \times 10^9/L$,白细胞、血沉、肿瘤标志物等未见异常。MRI 结果(图 1C、1D)示:左侧股骨上段可见多发局限性破坏,并病理性骨折,可见大小约 3.8 cm×5.0 cm 等 T₁ 长 T₂ 信号肿块影,信号欠均匀,局部皮质不连续,邻近软组织肿胀,右侧髋臼可见局限性异常信号,边缘显示略模糊。结合既往史及检查、检验结果,诊断为多发性嗜酸性肉芽肿。

〔收稿日期〕 2020-01-03

〔接受日期〕 2020-05-12

〔基金项目〕 陕西省中医药管理局“陕西省名中医工作室建设项目”资助(陕中医药发[2011]47 号),陕西省科学技术厅重点研发计划项目(2017SF-197)。Supported by Shaanxi Provincial Administration of Traditional Chinese Medicine ‘Construction Project of Famous Chinese Medicine Studio in Shaanxi Province’(Shaanxi Traditional Chinese Medicine [2011]47) and Key Research and Development Program of Science and Technology Department of Shaanxi Province(2017SF-197)。

〔作者简介〕 樊启象,硕士生。E-mail:937087077@qq.com

* 通信作者(Corresponding author)。Tel: 029-33341362, E-mail:liyigang9633@163.com

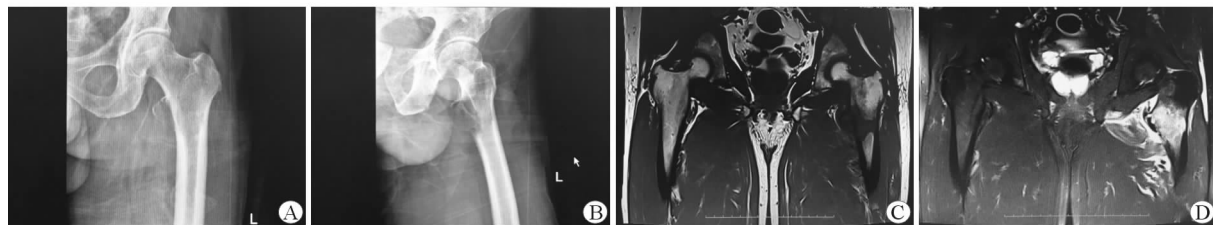


图 1 本病例 X 线、MRI 影像资料

A:左侧股骨正位 X 线;B:左侧股骨侧位 X 线,可见股骨转子间骨质破坏、骨膜反应,骨髓及软组织水肿,等 T₁ 长 T₂ 信号肿块影(箭头所示);C:股骨 MRI 冠状位 T₁ 成像;D:股骨 MRI 冠状位 T₂ 成像

1.2 治疗方法 低剂量放疗(5~10 Gy),再给予长春碱 2 mg+足叶乙苷 0.3 g 一次性静脉滴注化疗,左下肢予石膏固定 8 周,治疗后双侧颌下软组织包块变软且明显变小。1 个月后复查股骨 X 线,股骨小转子部分骨质吸收,未见新的溶骨性破坏。

2 讨论

2.1 发病机制 EG 发病机制尚不清楚,可能与过敏反应、自身免疫、病毒感染、肿瘤、昆虫叮咬等有关^[4]。因 EG 的病理表现主要为嗜酸性粒细胞浸润、淋巴滤泡和血管内皮细胞异常增生、血清 IgE、IL-4、IL-5、IL-13 的水平升高,所以绝大多数学者^[5]认为该病属于过敏反应性疾病。

2.2 临床表现 该病临床表现最主要为无痛性多发皮下肿块,单发少见,肿块可先后或同时出现,多位于颌面区及颈部,眶周、腋窝、腹股沟、骨骼也可累及,骨骼最常累及的是颅骨,其次是长管状骨、扁骨及脊柱,手足等短管状骨少见病变侵犯^[6]。肿块多为渐行性、无疼痛性增大,边界不清,与周围组织粘连,直径为 1~20 cm,平均为 3 cm,早期肿块质地较软,后期逐渐变大、变硬,并可出现局部皮肤瘙痒及色素沉着,严重者可出现糜烂、溃破^[7]。多数患者伴有局部淋巴结肿大,少数患者伴有并发症,其中以肾损害最为常见^[6],主要表现为肾病综合征。还可合并血管闭塞性脉管炎、支气管哮喘、分泌性中耳炎等^[8]。

2.3 诊断 EG 的术前诊断较为困难,应结合临床表现、实验室检查及影像学检查。在临床上如发现中青年男性存在头颈部无明显诱因的多发或单发慢性无痛性肿块或局部淋巴结肿大,实验室检查嗜酸性粒细胞及 IgE 明显升高,其嗜酸性粒细胞计数往往可超过 $0.6 \times 10^9/L$,肿瘤标志物多为阴性^[9],应引起注意。在 X 线上,长管状骨表现为溶骨性破坏,其内呈软组织密度,与其他慢性骨髓炎和骨恶

性肿瘤相似;CT 和磁共振成像分辨力高:病灶呈低密度或等密度影,边缘模糊,与周围组织无明显边界,侵犯骨骼时可见肉芽肿发生于骨髓腔,侵袭骨皮质,也可突破骨皮质累及软组织,主要特征为溶骨性破坏,由骨内发展至骨外浸透骨膜出现的软组织肿块、病灶内死骨、钙化及病变修复期纤维间隔的形成^[10]。影像学表现并无特异性,极易误诊为骨髓瘤、慢性骨髓炎、转移瘤、结核、骨恶性肿瘤等疾病。因此,病理检查对 EG 的诊断显得尤为重要,首选方法为病理活检,直接穿刺活检病灶检出阳性率较低,应在 CT 引导下穿刺活检来提高成功率^[11]。术中切除病变组织的病理检查是诊断该病的金标准^[12]。

2.4 治疗及预后 目前在 EG 的治疗方法上,学术界尚无统一准则,其中包括保守治疗、病灶内注射激素、手术病灶清除加植骨、系统性化疗、低剂量放疗等方法^[13]。就目前医疗水平,各种治疗方法都能达到较好的疗效。因 EG 浸润性增长,边界不清,往往有多发病灶,手术很难切除干净,单纯手术的复发率为 15%~40%,并可多次复发,时间间隔在数月至数十年不等,因此一般单纯手术治疗只限于单发、局限性病灶,术中应扩大切除范围,从而降低术后复发率^[14]。目前公认的是 EG 对放疗非常敏感,其有效率在 90%以上。Chitapanarux 等^[15]对 8 例确诊的 EG 患者行放疗,总剂量 30~40 Gy,毒性可耐受,随访 21 个月,无 1 例复发。大剂量放疗远期后遗症较多,如唾液腺损害、股骨头坏死及诱发恶性肿瘤,所以个性化放疗很重要。该病青少年多发,大剂量放疗对青少年副作用较大,所以可尽量选用低剂量放疗,也可达骨性愈合^[16]。对于单发的局灶性骨损害,可采用手术病灶刮除加植骨,后期可配合放疗防止复发,部分单发局限性病灶有自愈倾向;对于累及多个部位及发展迅速的 EG 患者,手术治疗很难解决且风险较大,化疗可预防远处播散

及控制,甚至治愈本病,可明显改善预后^[17]。也有文献^[6]报道称,应用皮质激素治疗 EG 可显著降低外周血嗜酸性细胞数量,强的松 30~60 mg/d 可使肿块明显变小或消失,但停药后极易复发。低剂量放疗结合化疗方案在临床上鲜有报道。魏瑞等^[18]对 3 例多发病灶给予手术加化、放疗,患者 5 年存活率为 100%。本病例行低剂量放疗+化疗,治疗后患者未见不适,颌下软组织包块变软及明显变小,左侧股骨小转子骨折行石膏固定 8 周,随访 1 年,患者骨折愈合,双侧颌下软组织未见增大,影像学检查未见复发。该病例随访时间较短,需长期随访来确认疗效。

综上所述,EG 发病率低,临床上较少见,易误诊,需要结合临床表现、实验室检查及影像学检查综合分析;在治疗上要早发现、早治疗,治疗方法较多,可针对患者情况进行个性化治疗。对于单发病灶可手术切除+放疗,临床效果明显;对于多发病灶及术后复发行低剂量放疗+化疗也可达到满意的治疗效果。

参考文献

- [1] CARRERA SILVA E A, NOWAK W, TESSONE L, et al. CD207⁺CD1a⁺ cells circulate in pediatric patients with active Langerhans cell histiocytosis[J]. *Blood*, 2017, 130(17): 1898-1902.
- [2] KOH H, KAMIISHI N, CHIYOTANI A, et al. Eosinophilic lung disease complicated by Kimura's disease; a case report and literature review[J]. *Intern Med*, 2012, 51(22): 3163-3167.
- [3] SUN Q F, XU D Z, PAN S H, et al. Kimura disease; review of the literature[J]. *Intern Med J*, 2008, 38(8): 668-672.
- [4] FOUDA M A, GHEITH O, REFAIE A, et al. Kimura disease; a case report and review of the literature with a new management protocol[J]. *Int J Nephrol*, 2011, 2010: 673908.
- [5] 汪跃平,游云华,梁 军,等.头颈部多发性 Kimura 病的临床与病理分析[J]. *中华口腔医学研究杂志*, 2009, 3(6): 48-50.
- [6] CHEN H, THOMPSON L D, AGUILERA N S, et al. Kimura disease; a clinicopathologic study of 21 cases [J]. *Am J Surg Pathol*, 2004, 28(4): 505-513.
- [7] 张 凯,贾志宇,张英怀.木村病临床研究进展[J]. *现代口腔医学杂志*, 2013, 27(6): 369-372.
- [8] MALEKI D, SAYYAH A, RAHIMI-RAD M H, et al. Kimura's disease with eosinophilic panniculitis-treated with cyclosporine; a case report [J]. *Allergy Asthma Clin Immunol*, 2010, 6(1): 5.
- [9] 张 凯,孔 玉,刘振丽,等.头颈部多发嗜酸性粒细胞增生性淋巴肉芽肿 1 例[J]. *河北医科大学学报*, 2015, 36(10): 1124, 1133, 1138.
- [10] 王 琪,胡营营,吕海莲.嗜酸性肉芽肿的 MRI 表现[J]. *中国中西医结合影像学杂志*, 2017, 15(5): 613-616.
- [11] SMET J, WEINSTEIN J, FAYAD L M. MRI and clinical features of Langerhans cell histiocytosis (LCH) in the pelvis and extremities; can LCH really look like anything? [J]. *Skeletal Radiol*, 2016, 45(5): 607-613.
- [12] DOKANIA V, PATIL D, AGARWAL K, et al. Kimura's disease without peripheral eosinophilia; an unusual and challenging case simulating venous malformation on imaging studies-case report and review of literature[J]. *J Clin Diagn Res*, 2017, 11(6): ME01-ME04.
- [13] ARKADER A, GLOTZBECKER M, HOSALKAR H S, et al. Primary musculoskeletal Langerhans cell histiocytosis in children; an analysis for a 3-decade period [J]. *J Pediatr Orthop*, 2009, 29(2): 201-207.
- [14] OHTA N, FUKASE S, SUZUKI Y, et al. Increase of Th2 and Tc1 cells in patients with Kimura's disease[J]. *Auris Nasus Larynx*, 2011, 38(1): 77-82.
- [15] CHITAPANARUX I, YA-IN C, KITTICHEST R, et al. Radiotherapy in Kimura's disease; a report of eight cases[J]. *J Med Assoc Thai*, 2007, 90(5): 1001-1005.
- [16] 刘志勇,周建林,刘世清.肩胛骨嗜酸性肉芽肿 1 例报告并文献复习[J]. *武汉大学学报(医学版)*, 2008, 29(6): 825-826.
- [17] MUSCOLO D L, SLULLITEL G, RANALLETTA M, et al. Spontaneous remission of massive solitary eosinophilic granuloma of the femur[J]. *J Pediatr Orthop*, 2003, 23(6): 763-765.
- [18] 魏 瑞,姜武忠,李 煜,等.嗜酸性肉芽肿 40 例临床分析[J]. *中国医师杂志*, 2007, 12(9): 1678-1679.

[本文编辑] 翟铖铖,贾泽军