

# 双侧腮腺非皮脂腺淋巴腺瘤1例并文献复习

邓文娟\*, 古冬连#

广西医科大学附属肿瘤医院医学影像中心, 广西 南宁

收稿日期: 2021年11月21日; 录用日期: 2021年12月11日; 发布日期: 2021年12月21日

## 摘要

非皮脂腺淋巴腺瘤是一种良性的非warthin淋巴样间质丰富的肿瘤, 伴有导管、鳞状和肌上皮成分的不稳定混合物, 其中心形态特征是皮脂腺成分的缺乏。本文就本院收治的1例双侧腮腺非皮脂腺淋巴腺瘤进行分析, 结合既往文献对该病进行复习总结, 以提高对该病的认识。

## 关键词

腮腺, 腮腺肿瘤, 非皮脂腺淋巴腺瘤

# Non-Sebaceous Lymphadenoma of Bilateral Parotid Gland: A Case Report and Literature Review

Wenjuan Deng\*, Donglian Gu#

Medical Imaging Center, Guangxi Medical University Affiliated Tumor Hospital, Nanning Guangxi

Received: Nov. 21<sup>st</sup>, 2021; accepted: Dec. 11<sup>th</sup>, 2021; published: Dec. 21<sup>st</sup>, 2021

## Abstract

Non-sebaceous lymphadenoma is a benign non-warthin lymphoid stromal tumor with an unstable mixture of ductal, squamous, and myoepithelial components. Its central morphological feature is the lack of sebaceous gland components. In this paper, a case of bilateral parotid non-sebaceous lymphadenoma admitted to our hospital was analyzed, and the disease was reviewed and summarized based on previous literatures to improve the understanding of the disease.

\*第一作者。

#通讯作者。

## Keywords

### Arotid, Parotid Tumor, Non-Sebaceous Lymphadenoma

Copyright © 2021 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. 前言

唾液腺的非皮脂腺淋巴瘤(non-sebaceous lymphadenoma, NSL)是一种罕见的良性肿瘤性病变,于1991年由 Auclair 等[1]首次报道,其最常见于腮腺,国内外相关研究报道较少[2]。腮腺非皮脂腺淋巴瘤的病因尚不清楚,治疗方式多为手术切除[3]。本文就本院收治的1例43岁的女性病例进行分析,并结合既往国内外文献,总结其临床、影像及病理特征,现进行汇报如下。

## 2. 病例情况

患者女,43岁,发现右侧腮腺肿物1年,检查发现双侧腮腺肿物5月余。患者双侧腮腺无红肿、疼痛等不适症状,5月余前肿物增大较明显,遂行超声检查后提示双侧腮腺肿物。查体:右侧耳垂前可见约4 cm × 3 cm 肿物,为多个融合,质硬,边界清,活动度差,无压痛;左侧耳垂前可触及一大小约1 cm × 1 cm 肿物,质硬,边界清,活动度差,无压痛。入院后检查示:血常规、尿常规、大便常规、肝肾功能及肿瘤标志物检查均未见异常。

超声检查示:双侧腮腺大小正常,形态欠规则,于左、右侧腮腺及腮腺前方探及多个类圆形或欠规则形团块回声像,边界可辨,内回声低,欠均匀,后方回声略强,较大为左侧1.2 cm × 0.7 cm,右侧2.8 cm × 0.9 cm;余腺体回声欠均匀。CDFI:两侧腮腺血流信号稀疏,各团块周边及内部探及丰富条状彩色血流信号。

CT检查示:双侧腮腺大小正常,双侧腮腺及腮腺前方可见多发结节影,大者位于右侧腮腺,大小约1.0 cm × 1.2 cm,平扫呈软组织密度(CT值约50~55 HU),增强扫描病灶第一期(注射造影剂后30 s)呈明显不均匀强化(CT值约78~85 HU),增强扫描第二期(注射造影剂后120 s)呈渐进性强化表现(CT值约92~98 HU),分边界尚清与临近结构分界尚清(图1~6)。



CT平扫示右侧腮腺及腮腺前方见两个软组织密度结节影(如箭头所示,CT值约52 HU)。

Figure 1. Non-contrast CT scan

图1. CT平扫



CT 增强扫描第一期横断位示右侧腮腺及腮腺前方结节呈明显均匀强化表现(如箭头所示, CT 值约 85 HU)。

**Figure 2.** Phase I of enhanced CT scan

**图 2.** CT 增强扫描第一期



CT 增强扫描第二期横断位示右侧腮腺及腮腺前方结节呈渐进性强化表现(如箭头所示, CT 值约 95 HU)。

**Figure 3.** Phase II of enhanced CT scan

**图 3.** CT 增强扫描第二期



CT 平扫示左侧腮腺内见一个软组织密度结节影(如箭头所示, CT 值约 50 HU)。

**Figure 4.** Non-contrast CT scan

**图 4.** CT 平扫



CT 增强扫描横断位示左侧腮腺结节亦呈明显均匀强化表现(如箭头所示, CT 值约 80 HU)。

**Figure 5.** Phase I of enhanced CT scan

**图 5.** CT 增强扫描第一期



CT 增强扫描第二期横断位示左侧腮腺结节呈渐进性强化表现(如箭头所示, CT 值约 93 HU)。

**Figure 6.** Phase II of enhanced CT scan

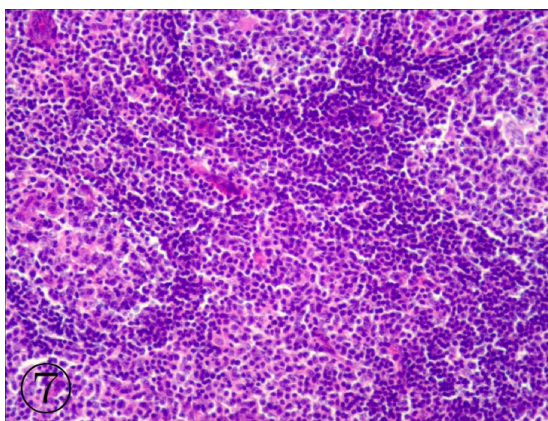
**图 6.** CT 增强扫描第二期

入院完善相关检查后, 该患者进行了右侧腮腺肿块的切除, 术后病理提示: (右腮腺肿物)灰红结节状组织数块, 小者直径 0.8 cm, 大者直径 2.8 cm, 部分有包膜, 切面灰白实性质中, 较细腻。镜下见含淋巴滤泡的淋巴样间质中含上皮性肿瘤细胞岛, 上皮岛细胞排列呈管状或为实性巢状, 形态较温和, 未见明显核分裂像, 无皮脂腺分化。免疫组化肿瘤性上皮: CK7 (+), CK19 (+), CK5/6 (+), P63 (部分+), S-100 (少量+), Ki67 (+15%)。病理诊断: (右腮腺肿物)淋巴上皮增生性病变, 倾向于非皮脂腺淋巴腺瘤(图 7, 图 8)。

### 3. 讨论

NSL 是一种罕见的良性的非 warthin 淋巴样间质丰富的肿瘤, 伴有导管、鳞状和肌上皮成分的不稳定混合物, 其中心形态特征是皮脂腺成分的缺乏。NSL 的病因尚不清楚, 但关于它的发展目前有两种理论: 第一种理论认为肿瘤是腮腺内或腮腺周围淋巴结内异位的胚胎唾液腺残留物[4]; 第二种理论认为 NSL 为

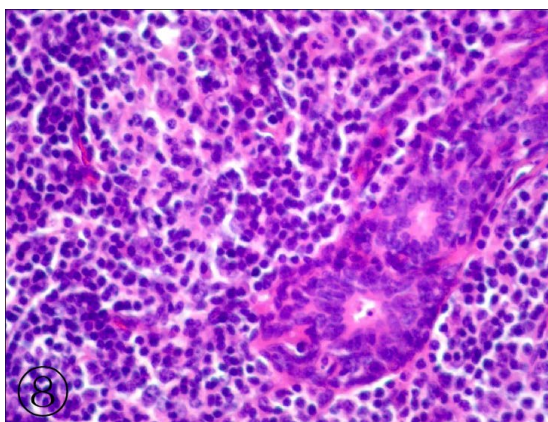
腮腺上皮细胞的瘤样增生, 并将淋巴细胞视为肿瘤反应性增生相关的淋巴组织[5]。在我们这例病例中, 由于肿瘤位于腮腺内被正常腮腺组织包围, 且含淋巴滤泡结构, 因此我们认为第一种理论更能解释。



示镜下见淋巴组织增生, 淋巴滤泡形成; HE × 100 倍。

**Figure 7.** The pathological images HE × 100

**图 7.** 病理图片 HE × 100



示片淋巴样细胞间质中含有上皮性肿瘤细胞岛, 上皮岛排列呈管状或实性巢状, 形态温和, 未见核分裂像; HE × 200 倍。

**Figure 8.** The pathological images HE × 200

**图 8.** 病理图片 HE × 200

NSL 发病年龄为 11~80 岁, 常见发病年龄为 50~70 岁, 平均发病年龄为 48 岁, 有罕见的恶性转化[6], 无特异性临床特征, 临床上通常表现为无痛、生长缓慢的肿块, 症状从几个月到几年不等。影像学检查(如超声、CT、MRI)的作用主要在于对于腮腺 NSL 的定位、定性以及与判断临近结构的关系上, 对于病种的诊断较为困难, 影像上缺乏特异性, 既往报道对于影像方面的描述较少。本例病例的特殊性在于, 双侧腮腺内的多发占位病变, 既往无类似病例报道。参考本例病例影像学表现, 腮腺内或腮腺周围边界稍高密度的结节或肿块, 边界常较为清楚, 可多发及发生于双侧腮腺内, 密度均匀, 增强扫描可见明显强化的特点或可作为 NSL 的影像特征。

NSL 的病理诊断标准最早由 Dardick 和 Thomas [7]建立; 他们提出了 5 个特征性的发现, 包括: 1) 非皮脂腺分化; 2) 非嗜酸细胞上皮; 3) 普遍存在有或无生发中心的淋巴细胞成分; 4) 实性、腺性或囊

性上皮巢; 5) 界限较为明确, 不存咋淋巴结被膜或被膜下窦状结构。

NSL 的鉴别诊断包括 Warthin 瘤、混合瘤、淋巴上皮癌、慢性涎腺炎、良性淋巴上皮囊肿等等。Warthin 瘤, 即腺淋巴瘤, 好发于长期吸烟的中老年男性, 具有一侧或两侧腮腺多发、囊实病灶并存、多发生于腮腺浅叶后部等特点, 增强扫描第二期密度明显低于第一期(呈延迟排空表现), 对临近结构呈推压的改变, 多无面神经症状。临床是, Warthin 瘤有较为常见的发病年龄和性别特点; 影像上, 与非皮脂腺淋巴瘤相比, Warthin 瘤密度/信号可更不均匀, 增强扫描呈延迟排空表现; 病理上, Warthin 瘤可存在嗜酸性的上皮细胞, 并可见乳头状结构[8]。混合瘤也是腮腺常见的良性肿瘤, 占腮腺肿瘤 80%, 由多种成分混合(上皮、粘液、软骨等), 磁共振 T2WI 压脂呈明显高信号, 囊变区周边分布, 部分可见低信号包膜, 增强第二期肿瘤密度高于第一期(呈延迟强化表现), 对邻近结构也是表现为推压改变, 常无面神经症状。与 NSL 相比, 影像上, 混合瘤因成分复杂, 密度/信号多不均匀, 可有囊变; 病理上, 混合瘤由肌上皮组织、黏液和软骨样间质构成, 部分病灶可出现胶原、纤维化、玻璃样变及大片梗死, 此外, 导管上皮可以形成多发大小不一的管腔或囊肿, 期内含多量嗜酸性蛋白样分泌物。黏液软骨样区可伴有多灶性钙化, 并且可多处存在由鳞状上皮化生所形成的层状角化物[9]。涎腺淋巴上皮癌, 具有恶性肿瘤的影像学表现特点, 密度不均匀, 增强扫描可见明显不均匀强化, 可侵犯邻近结构, 出现面神经症状等表现; 临床上, 涎腺淋巴上皮癌可伴有 EB 病毒的感染, 而 NSL 则未见有相关报道; 影像上, 两者的鉴别主要在于良恶性病变的鉴别, NSL 可出现多发的表现; 病理上, 涎腺淋巴上皮癌可出现淋巴细胞间质浸润以及导管上皮、肌上皮增生形成的“上皮岛”, 核分裂相多见, 而 NSL 上皮细胞形态上较为温和, 缺乏核分裂象以及间质浸润等恶性肿瘤常见的组织学特征[10]。

总之, 腮腺 NSL 是一种罕见的良性病变, 主要的形态学特征是皮脂腺成分的缺乏, 恶性转化很少发生。可以通过临床表现、CT、MRI、超声和穿刺活检进行诊断。虽然 NSL 没有侵袭邻近结构的倾向, 但手术切除是主要治疗方式, 腮腺浅表切除和面神经保留是标准的诊断 - 治疗流程。腮腺 NSL 总体上预后良好, 复发率低[11]。

注: 该病例报道获得病人的知情同意。

## 参考文献

- [1] Auclair, P.L., Ellis, G.L. and Gnepp, D.R. (1991) Other Benign Epithelial Neo-Plasms. In: Ellis, G.L., Auclair, P.L., Gnepp, D.R., Eds, *Surgical Pathology of the Salivary Glands*, Saunders, Philadelphia, 252-268.
- [2] 吴琼, 李皖云, 武世伍, 等. 腮腺非皮脂腺淋巴瘤 2 例并文献复习[J]. 临床与实验病理学杂志, 2014(12): 74-78.
- [3] 谷建琦, 李娟, 陈琛. 腮腺非皮脂腺淋巴瘤 1 例并文献复习[J]. 现代口腔医学杂志, 2018(4): 245.
- [4] Weiler, C., Agaimy, A., Zengel, P., Zenk, J., Kirchner, T. and Ihrler, S. (2012) Nonsebaceous Lymphadenoma of Salivary Glands: Proposed Development from Intraparotid Lymph Nodes and Risk of Misdiagnosis. *Virchows Archiv*, **460**, 467-472. <https://doi.org/10.1007/s00428-012-1225-z>
- [5] Ishii, A., Kawano, H., Tanaka, S., et al. (2013) Non-Sebaceous Lymphadenoma of the Salivary Gland with Serous Acinic Cell Differentiation, a First Case Report in the Literature. *Pathology International*, **63**, 272-276. <https://doi.org/10.1111/pin.12061>
- [6] Seethala, R.R. and Stenman, G. (2017) Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Tumors of the Salivary Gland. *Head and Neck Pathology*, **11**, 55-67. <https://doi.org/10.1007/s12105-017-0795-0>
- [7] Dardick, I. and Thomas, M.J. (2008) Lymphadenoma of Parotid Gland: Two Additional Cases and a Literature Review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2008;105:491-494. <https://doi.org/10.1016/j.tripleo.2007.08.035>
- [8] Gallego L, Junquera L, Fresno MF. Non-sebaceous lymphadenoma of the parotid gland: immunohistochemicals-Tudy and DNA ploidy analysis. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology*, **107**, 555-558. <https://doi.org/10.1016/j.tripleo.2008.11.018>
- [9] 陈林锋, 王海滨, 魏培英, 等. 腮腺多形性腺瘤常规 MRI 征象与临床病理表现对照研究[J]. 浙江医学, 2021,

43(2): 223-226.

- [10] 王占红, 刘铁军, 马福军. 腮腺非皮脂腺淋巴瘤 1 例及文献复习[J]. 临床与实验病理学杂志, 2010, 26(4): 493-494.
- [11] Morales, C.A.M., Mayo, A.E.R., Gonzalez-Urquijo, M., *et al.* (2021) Non-Sebaceous Lymphadenoma of the Parotid Gland Mimicking a Pleomorphic Adenoma. *Clinical Pathology*, **14**. <https://doi.org/10.1177/2632010X21996338>