

· 病例报告 ·

误诊为颈部淋巴管瘤的颈深部淋巴上皮囊肿 1 例



全文二维码

王意¹ 刘鑫¹ 王群群² 马达¹ 曲志博¹¹ 东莞市第八人民医院(东莞市儿童医院)小儿外科, 东莞 523000; ² 东莞市第八人民医院(东莞市儿童医院)内科五区, 东莞 523000

通信作者: 曲志博, Email: zhiboqu@126.com

Lymphoepithelial cyst misdiagnosed as deep cervical lymphangioma: one case report

Wang Yi¹, Liu Xin¹, Wang Qunqun², Ma Da¹, Qu Zhibo¹¹ Department of Pediatric General Surgery, Eighth Municipal People's Hospital (Dongguan Children's Hospital), Dongguan 523000, China; ² Ward V of Internal Medicine, Eighth Municipal People's Hospital (Dongguan Children's Hospital), Dongguan 523000, China

Corresponding author: Qu Zhibo, Email: zhiboqu@126.com

【摘要】 淋巴上皮囊肿又名良性淋巴上皮囊肿,其命名在临床上存在争议,既往有学者称之为鳃裂囊肿,该病临床上不多见,并且容易出现误诊,发生在儿童时期的颈深部淋巴上皮囊肿鲜有文献报道。本文报告 1 例误诊为颈部淋巴管瘤的颈深部淋巴上皮囊肿病例,探讨淋巴上皮囊肿的临床特点及诊疗难点,并结合文献对该病进行系统复习,为临床诊疗工作提供参考。

【关键词】 淋巴上皮囊肿; 淋巴管瘤; 外科手术; 儿童

【基金项目】 东莞市社会发展科技项目(20231800939942)

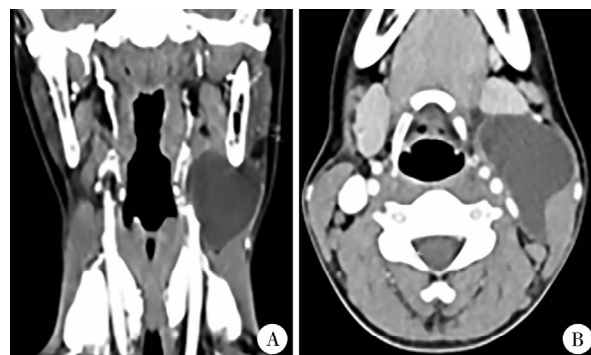
DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202308029-018

淋巴上皮囊肿(lymphoepithelial cyst, LEC)又名良性淋巴上皮囊肿(benign lymphoepithelial cyst, BLEC),其命名在临床上存在争议,既往有学者称之为鳃裂囊肿(branchial cleft cyst, BCC),该病临床上不多见,尤其发生在儿童时期的颈深部 LEC 鲜有文献报道,且容易出现误诊^[1]。东莞市儿童医院小儿外科收治 1 例发生于左侧颈深部的 LEC 患儿,曾于外院诊断为颈部淋巴管瘤,行 2 次硬化剂注射治疗,效果不佳;入本院后行手术根治,预后良好,现报道如下:

患儿女,13 岁,因发现左侧颈部肿物 8 个月入院治疗,患儿家属代诉入院前 8 个月无意中发现患儿左侧颈部肿物,曾就诊于当地医院,行超声及颈部 CT 检查后诊断为左侧颈部淋巴管瘤,遂行超声引导下淋巴管瘤硬化治疗,治疗 1 周后发现肿物复发。硬化治疗 3 个月后进行第二次超声引导下淋巴管瘤硬化治疗,治疗效果仍欠佳,肿物再次复发。入院查体:双侧颈部不对称,头部向右侧偏斜,左侧颈部隆起,于左侧胸锁乳突肌前缘中上 1/3 处触及肿物,大小约 6 cm × 5 cm × 4 cm,质韧,活动度尚可,波动感阳性,边界尚清,无明显压痛,皮肤未见破溃,不随吞咽及伸舌上下移动,患侧颈部皮肤颜色正常,皮温正常。颈部增强 CT 示:左颈部肌间见囊性肿块,肿块位于左侧腮腺下方、颌下腺后方、颈动脉鞘外侧及胸锁乳突肌内侧,增强扫描后未见强化,邻近软组织受压、移位(图 1)。完善相关检查后确认患儿无明显手术禁忌证,遂行左侧颈部肿物切除术,术中左侧颈部可探及一囊性肿物,大

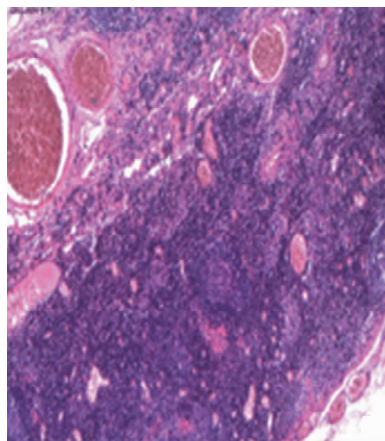
小约 6 cm × 5 cm,其上方为左侧腮腺,前方为颌下腺,内侧为颈动脉鞘,外侧为胸锁乳突肌,术中诊断为左侧颈深部囊肿,将肿物完整切除,切开肿物可见乳糜状液体,镜下见囊肿被覆鳞状上皮,周围有明显的淋巴组织增生伴有突出的生发中心,符合 LEC 表现(图 2)。

讨论 LEC 是一种相对罕见的囊性肿瘤,其起源及命名尚存在争议^[2]。首例 LEC 于 1832 年报道,认为 LEC 是一种先天性鳃裂发育异常,由胚胎时期鳃弓残余物发展而来^[3]。1949 年 King^[4] 研究发现部分 LEC 病例中,囊肿并非来源于



注 A:术前增强 CT 冠状位图像; B:术前增强 CT 横断位图像

图 1 淋巴上皮囊肿患儿增强 CT 片
Fig. 1 Enhanced neck CT images of a child with lymphoepithelial cyst



注 镜下可见淋巴滤泡形成,有发生中心

图2 淋巴上皮囊肿患儿病理图片 (HE染色,10×40)

Fig. 2 Histopathological image of a child with lymphoepithelial cyst (HE stain,10×40)

胚胎时期鳃弓残余物,提出了“颈侧囊肿”一词;而 Bernier 等^[5]认为 LEC 是由腺体的上皮组织陷入颈部淋巴组织发生囊性变而引起。

LEC 是一种生长缓慢的良性囊性肿瘤,主要表现为无痛且生长缓慢的囊性肿物,可伴有吞咽困难、呼吸困难、喘鸣、斜颈等症状,继发感染时可表现为红肿热痛等急性感染症状。LEC 的鉴别诊断主要包括:颈部淋巴管瘤、颈部血管瘤、甲状舌骨囊肿、颈部淋巴结疾病等。LEC 与颈部淋巴管瘤在临床表现上较相似,存在一定的鉴别困难,其中单囊与多囊是一个鉴别要点,LEC 通常表现为单囊,而颈部淋巴管瘤通常表现为多囊;也可以通过超声引导下囊肿穿刺并根据抽液性状进行鉴别,LEC 穿刺液可能含有角蛋白与脱落的炎症细胞,可形成粘稠的胶状、黄白色液体;而淋巴管瘤囊液多为淡黄色澄清透明液体,囊内出血时可见血性液体。LEC 术前辅助检查包括 CT、MRI、超声和细针穿刺细胞学检测。LEC 超声表现为圆形或卵圆形,包膜完整,内壁光滑,囊壁血流信号不丰富;CT 表现为颈部单个薄壁圆形或椭圆形囊性灶,囊肿内边界清,密度低^[6]。CT 增强扫描仅囊肿壁不强化或轻度强化,囊内无强化。MRI 主要表现为颈部单发薄壁囊性病变,边界清晰,囊壁低信号;囊内 T1 加权成像为低信号,T2 加权成像为高信号,增强扫描可见囊壁增强成像,但囊内无强化。临床上值得注意的是,人类免疫缺陷病毒(human immunodeficiency virus,HIV)相关性 LEC 的发病率逐渐升高,其发病部位主要为腮腺、颌下腺等腺体组织,发病机制可能与 HIV 感染的细胞迁移到腺体淋巴组织中,导致腺体淋巴组织增生,最终导致腺体导管阻塞、扩张有关^[7]。HIV 感染相关性 LEC 病例多为双侧腺体受累,表现为双侧颈部无痛性肿物,可作为 HIV 感染的首发临床表现。因此,罹患 LEC 的患者要注意 HIV 的相关血液检查。

LEC 囊壁通常为鳞状上皮或柱状、立方体细胞,囊肿壁为层状鳞状上皮,多为不完全角化,周围有大量淋巴样间质,

伴淋巴滤泡形成,有发生中心。LEC 的上皮细胞可能含有角蛋白与脱落的炎症细胞,可形成黏稠的胶状、黄白色液体。而与其临床表现相似的淋巴管瘤囊壁多为薄层纤维结缔组织,壁内衬以扁平内皮细胞,囊内含清亮淋巴液。LEC 可行注射硬化剂治疗,硬化治疗目前多使用聚多卡醇注射液及聚桂醇注射液,但存在较高的复发率^[8]。本病例在外院诊断为颈部淋巴管瘤,行硬化治疗,效果欠佳。目前,LEC 的治疗原则为手术根治性切除,术中应注意识别和避免损伤邻近的重要血管和神经。目前关于 LEC 的报道(特别是儿童时期报道)不多,其病因、诊断、鉴别诊断以及治疗方式仍需进一步探究。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突

作者贡献声明 文献检索为王意、刘鑫、王群群;论文调查设计为马达、曲志博;论文结果撰写为王意;论文讨论分析为王意、曲志博

参 考 文 献

- [1] Joshi J, Shah S, Agarwal D, et al. Benign lymphoepithelial cyst of parotid gland: review and case report [J]. J Oral Maxillofac Pathol, 2018, 22 (suppl 1): S91 - S97. DOI: 10. 4103/jomfp. JOMFP_252_17.
- [2] Glosser JW, Pires CAS, Feinberg SE. Branchial cleft or cervical lymphoepithelial cysts: etiology and management [J]. J Am Dent Assoc, 2003, 134 (1): 81 - 86. DOI: 10. 14219/jada. archive. 2003. 0020.
- [3] Panchbhaj AS, Choudhary MS. Branchial cleft cyst at an unusual location: a rare case with a brief review [J]. Dentomaxillofac Radiol, 2012, 41 (8): 696 - 702. DOI: 10. 1259/dmfr/59515421.
- [4] King ESJ. The lateral lympho-epithelial cyst of the neck; branchial cyst [J]. Aust N Z J Surg, 1949, 19 (2): 109 - 121. DOI: 10. 1111/j. 1445-2197. 1949. tb03690. x.
- [5] Bernier JL, Bhaskar SN. Lymphoepithelial lesions of salivary glands; histogenesis and classification based on 186 cases [J]. Cancer, 1958, 11 (6): 1156 - 1179. DOI: 10. 1002/1097-0142 (195811/12) 11 : 6 < 1156 : : aid-cnecr2820110611 > 3.0. co;2-2.
- [6] Moon JY, Kim N, Jeong JY, et al. Lymphoepithelial cyst in the palatine tonsil: a case report and literature review [J]. Medicine (Baltimore), 2022, 101 (20): e29246. DOI: 10. 1097/MD. 00000000000029246.
- [7] Ahamed AS, Kannan VS, Velaven K, et al. Lymphoepithelial cyst of the submandibular gland [J]. J Pharm Bioallied Sci, 2014, 6 (Suppl 1): S185 - S187. DOI: 10. 4103/0975-7406. 137464.
- [8] Pillai S, Agarwal AC, Mangalore AB, et al. Benign lymphoepithelial cyst of the parotid in HIV negative patient [J]. J Clin Diagn Res, 2016, 10 (4): MD05 - MD06. DOI: 10. 7860/JCDR/2016/17915. 7609.

(收稿日期:2023-08-22)

本文引用格式:王意,刘鑫,王群群,等.误诊为颈部淋巴管瘤的颈深部淋巴上皮囊肿1例[J]. J Clin Ped Sur, 2024, 23 (11): 1096-1097. DOI:10. 3760/cma. j. cn101785-202308029-018.

Citing this article as: Wang Y, Liu X, Wang QQ, et al. Lymphoepithelial cyst misdiagnosed as deep cervical lymphangioma: one case report [J]. J Clin Ped Sur, 2024, 23 (11): 1096 - 1097. DOI: 10. 3760/cma. j. cn101785-202308029-018.