

· 临床研究 ·

头颈部增生性肌炎 1 例报道及文献复习

谢 洪¹, 周晓红¹, 昌 红², 陈奕至²

(首都医科大学附属北京世纪坛医院 1. 耳鼻咽喉头颈外科; 2. 病理科, 北京 100038)

摘 要: **目的** 总结头颈部增生性肌炎的临床及组织病理学特点, 并对其诊疗及预后进行分析。**方法** 报道 1 例发生在胸锁乳突肌中的增生性肌炎的临床特征、组织病理学特点和诊断治疗, 并对患者预后进行随访。同时对国内外报道的头颈部增生性肌炎的相关文献进行复习。**结果** 增生性肌炎是一种发生在骨骼肌中罕见的良性假肉瘤样快速生长疾病。它有独特的病理学表现, 受累的肌肉组织中有大量梭形纤维细胞和巨大神经节样细胞。单纯局部手术切除后治愈, 因为它有自限性或自愈性。随访无复发。**结论** 增生性肌炎是一种良性病变, 病理学检查能够确诊。手术切除即可治愈, 因有自愈倾向也可以观察等待。

关 键 词: 增生性肌炎; 头颈部; 临床特性; 病理学

中图分类号: R651

文献标识码: A

文章编号: 1007-1520(2012)06-0441-04

Proliferative myositis of the head and neck (Report of one case with literature review)

XIE Hong, ZHOU Xiao-hong, CHANG Hong, et al.

(Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, the Affiliated Beijing Shijitan Hospital, Capital Medical University, Beijing 100038, China)

Abstract: **Objective** To summarize the clinical and histopathological characteristics of proliferative myositis, and to study its diagnosis, treatment and prognosis. **Methods** The clinical features, histopathological characteristics, diagnosis, treatment and prognosis of one case of proliferative myositis arising from the sternocleidomastoid muscle were analyzed retrospectively. The relative literature was reviewed. **Results** Proliferative myositis was a rare, benign, rapidly growing disease of the skeletal muscle. It had specific histopathological characteristics. There were giant ganglion-like cells and a large number of spindle-shape fibroblastic cells infiltrated in the infiltrated skeletal muscle. It could be cured by conservative surgical excision. The lesion could even be observed because of its self-limiting and self-healing tendency. The tumor of this case didn't recur during the follow-up period. **Conclusion** Proliferative myositis is a benign disease which requires pathological evaluation to confirm the diagnosis and can be cured by conservative excision. The lesion can even be observed.

Key words: Proliferative myositis; Head and neck; Clinic characteristics; Pathology

增生性肌炎 (proliferative myositis, PM) 是发生在骨骼肌中的一种罕见的良性肿瘤样生长疾病。自 1960 年 Kern^[1] 首先报道, 作为一种单独的疾病, 将其与其他软组织假肉瘤样疾病区分开来, 迄今为止国外报道已超过 100 例, 国内报道文献 25 例中发生在头颈部的少见。

但由于其生长迅速, 常被误诊为恶性肿瘤而给予不必要的根治性治疗, 因此在临床工作中需予以重视。本文结合我科的 1 例头颈部增生性肌炎患者的临床资料, 并复习相关国内外文献, 以期总结发生在头颈部的增生性肌炎的临床特点。

1 临床资料

患者,女,74岁,因为发现左侧颈部肿块1周入院。患者1周前无意中发现左侧颈部一肿块,触摸时有压痛感,局部无红肿。无咳嗽、咯痰、痰中带血、耳闷、鼻塞、吞咽困难、进食梗阻、胃痛、胃胀等不适。门诊颈部B超显示甲状腺未见异常,颈部未见明显异常肿大的淋巴结,包块位于左侧颈部上中段,呈梭状膨隆,边界清楚,肌纤维部分排列紊乱,期间可见条状物回声暗带,范围约5.1 cm×4.1 cm×1.9 cm,彩超示其内血流信号增多,考虑为左颈部实性占位。入院查体:左侧胸锁乳突肌中部可触及一个约6 cm×4 cm×3 cm大小、光滑、左右可活动的肿块,稍有触痛,无波动感,质地中等,见图1。入院行胸部正侧片、腹部B超及电子鼻咽喉镜检查未见异常。颈部CT检查显示左侧颈部、颈血管鞘外侧、左胸锁乳突肌下方可见一类圆形结节约3.6 cm×2.3 cm×7.8 cm

大小,其内密度不均,可见斑片状坏死,增强扫描实性部分明显强化,但不均匀,肿块与胸锁乳突肌分界不清;左颈血管鞘周围可见少许小淋巴结,边界清楚,增强扫描强化较均匀。考虑为左颈部占位,神经源性肿瘤可能性较大,不排除恶性病变可能。遂行全身麻醉手术切除左颈部肿块,术中见瘤体约5 cm×4 cm×2.5 cm大小,位于胸锁乳突肌肉内,于胸锁乳突肌的中下1/3到颈总动脉分叉上部约1.5 cm处,将部分胸锁乳突肌及瘤体完整切除,剖开见瘤体有包膜但欠完整,灰白色,其内组织为瘢痕样,无液化钙化及出血见图2。同时见舌骨平面下有一直径约1 cm的淋巴结,送冰冻检查结果为正常。患者手术后恢复良好,伤口拆线出院。术后病理结果显示为横纹肌组织内见梭形细胞,部分细胞为神经节样嗜碱性巨细胞,结合形态及免疫组化(CK、S-100、Syn、CD34、CD68、Lyz、SMA均为阴性,Ki-67<5%+),符合增生性肌炎改变(核分裂0个<10HPF)(图3,4)。



图1



图2

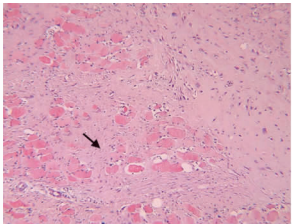


图3

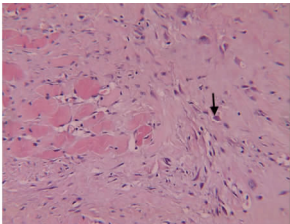


图4

图1 患者左侧胸锁乳突肌中部肿块 图2 术中可见肿块位于胸锁乳突肌内,呈灰白色瘢痕样硬结,包膜不完整 图3 病检示:肌肉组织间大量的梭形细胞(HE×100) 图4 病检示:神经节样嗜碱性巨细胞(HE×200)

2 讨论

到目前为止,国外报道了100余例增殖性肌炎,其中所能查找到的英文文献以及国内文献所报道的发生在头颈部的增殖性肌炎病例数总共为20例(表1)。尽管这种疾病在头颈部的发生很罕见,但是通过表中的数据笔者可以得到该病的一些临床特点。

表1中患者发病年龄从9~82岁,主要位于40~70岁,平均年龄为51.2岁,男女比例为12:8,男性患者多于女性。病变最常累及部位为胸锁乳突肌(8例),其次是咬肌和舌肌

(各为3例),剩下的是颊肌2例,肩胛提肌、下颌舌骨肌各1例,文献中未明确指出所累及肌肉者2例。其中50%的患者病程小于2个月,有的甚至只有几天到1周,包括本文所报道的患者从发病到就诊只有1周时间。所有患者在局部活检或者完整肿块切除后随访均没有复发或者转移。部分患者表现为发现一个疼痛或者压痛的、边界清楚的包块,包括本文所报道的这例。肿块质地描述为坚硬的约占一半(11/20),部分可以活动,但活动范围大小不一,与所发生的部位有关,本例仅能左右活动,上下固定。短期内迅速增大50%(10/20)。有1例发生在咬肌的增生性肌炎

患者主诉为牙关紧闭,咀嚼困难^[4],而另 1 例 则诉说舌部痛性包块妨碍说话和吞咽^[9]。

表 1 文献报道头颈部增生性肌炎病例情况

病例	报道作者	年龄	性别	部位	外伤史	治疗	随访	病程
1	Kern WH ^[1]	40	女	胸锁乳突肌	无	切除	不详	2 周
2	Enzinger FM ^[2]	67	女	左颈部	有	切除	3 年,无复发	7 月
3	Enzinger FM ^[2]	60	男	胸锁乳突肌	有	切除	9 月,无复发	几周
4	Enzinger FM ^[2]	48	男	胸锁乳突肌	无	切除	10 月,无复发	10 d
5	Enzinger FM ^[2]	82	男	胸锁乳突肌	不详	切除	1 年无复发	不详
6	Donegan JO ^[3]	49	男	左侧咬肌	不详	切除	1 年无复发	1 周
7	Orlowski W ^[4]	62	男	左侧咬肌	无	部分切除	9 月痊愈消失	3 周
8	Scher N ^[5]	33	男	右侧咬肌	无	切除	不详	4 月
9	Lundgren L ^[6]	68	男	左胸锁乳突肌	无	针吸活检	1 年,自然消失	不详
10	Choi SS ^[7]	9	女	下颌舌骨肌	有	切开活检	4 周痊愈	4 d
11	Dent CD ^[8]	33	男	舌背	无	口内切除	2 年,无复发	不详
12	Singh A ^[9]	46	女	左侧舌缘	不详	活检	3 月,无复发	不详
13	蒋崇槟 ^[10]	30	女	左侧颊肌	无	局限切除	无复发	不详
14	洪浩波 ^[11]	49	女	肩胛提肌	不详	锥形切除	无复发	不详
15	Haloi AK ^[12]	28	男	左侧锁骨上窝	不详	锥形活检	不详	不详
16	Brooks JK ^[13]	65	男	右侧舌背	无	切除活检	5 月,无复发	2 周
17	Fauser C ^[14]	64	女	右胸锁乳突肌	无	切除	15 月,无复发	4 d
18	Yigit H ^[15]	48	男	左侧胸锁乳突肌	无	完整切除	不详	几 d
19	谢洪	74	女	左侧胸锁乳突肌	无	完整切除	3 年,无复发	1 周

增生性肌炎的病因目前未完全阐明清楚,尽管文献中通常认为增生性肌炎代表一种反应性的病变。近期各种影响身体的外伤被认为特异性的病因占 42% (10/24)^[2]。但是在本文所统计的 20 例发生在头颈部的增生性肌炎中,有明确外伤史的只有 3 例,仅占 15%。而口腔内的组织,如舌部、颊肌、咬肌很容易发生咬伤。因此外伤是不是该病的一个病因有待于进一步观察。

增生性肌炎的确诊依赖病理。大体标本检查显示肿块几乎为一个瘢痕样硬结,灰白色,边界不清,无包膜或者不完整^[5]。本例病变切下后从中切开其剖面表现亦如此,剖面为灰白色硬结,包膜不完整,位于胸锁乳突肌内,呈瘢痕样改变,但是没有侵犯邻近的软组织。在显微镜下观察,Enzinger 等^[2]从 33 例中总结该病变有两个主要的病理特征:①大量的侵及肌外膜、肌束膜和肌内膜的成纤维细胞增生,呈梭形;②与神经节细胞或者横纹肌母细胞相似的大嗜碱性巨细胞。细胞增殖绝大多数位于

筋膜下区域或者位于将较大的肌束连接起来的结缔组织分隔之间,较少侵及单个肌纤维中的肌内膜。他认为,增生性肌炎的特点是病变累及的是基质组织,肌纤维组织实际上不受影响。其次是病变发生处的肌肉萎缩或者局限性的缺血坏死,但是既没有肌纤维膜的增生,也没有肌肉的再生。

增生性肌炎的鉴别诊断在病理上需要与各种良性的和恶性的病变,例如结节性筋膜炎、增生性筋膜炎、局限性肌炎、骨化性肌炎、带状纤维瘤、神经节瘤、炎性肌纤维母细胞瘤、横纹肌瘤、肌间血管瘤、横纹肌肉瘤、结缔组织样鳞癌相鉴别。同时发生在胸锁乳突肌或者颈部的增生性肌炎,在临床就诊时还需要排除容易发生颈部淋巴结转移的恶性肿瘤,如鼻咽癌、喉癌、下咽癌、甲状腺癌、肺癌、胃癌等,以及发生在颈部的淋巴瘤。这就要求我们详细询问病史,同时仔细做耳鼻咽喉头颈外科的专科检查及全身体格检查。

增生性肌炎的早期病例常常误诊为恶性肿

瘤,因其罕见的细胞结构和过度生长的行为,常常给予过度治疗,通常根治性切除,有时给予淋巴结清扫,化学治疗或者放射治疗,Enzinger 等^[2]报道 33 例患有增生型肌炎的患者中,其中有 14 例患者首先诊断为恶性肿瘤,14 例中有 8 例诊断为横纹肌肉瘤,14 例患者中 11 例接受了根治性手术。但是其余只接受了活检或者局部切除的患者术后随访最长达 4 年,也没有发现复发或者转移。因此保守切除即可治愈。本例亦只将肿块及其周围累及的肌肉组织切除,而没有完全切除胸锁乳突肌,术后随访 3 年无复发和转移。近期文献^[13]报道 45% (36/80) 的增生性肌炎患者仅接受了局部活检或者针吸活检,结果病变自然消失。本文总结的 20 例头颈部增生性肌炎中,Lundgren 等^[6]对 1 例发生在胸锁乳突肌的增生性肌炎患者局部针吸活检,随访 1 年,发现肿物自然消失。迄今为止,没有恶变或者转移的报道。因此,对于增生性肌炎,切开活检或者针吸活检可作为一种诊断的方法,治疗可以采取观察等待的态度。但如果病变进展迅速,影响躯体功能、导致面型受损,则可将病变切除。

参考文献:

[1] Kern WH. Proliferative myositis: a pseudosarcomatous reaction to injury: a report of seven cases [J]. Arch Pathol, 1960, 69(2): 209 - 216.

[2] Enzinger FM, Dulcey F. Proliferative myositis. Report of thirty-three cases [J]. Cancer, 1967, 20(12): 2213 - 2223.

[3] Donegan JO, Miller TH, Wirman JA. Proliferative myositis in the head and neck. Report of a case and review of the literature [J]. Am J Otolaryngol, 1983, 4(6): 442 - 444.

[4] Orlowski W, Freedman PD, Lumerman H. Proliferative myosi-

tis of the masseter muscle. A case report and a review of the literature [J]. Cancer, 1983, 52(5): 904 - 908.

[5] Scher N, Dobleman TJ, Poe DS, et al. Proliferative myositis of the masseter muscle [J]. Laryngoscope, 1987, 97(5): 591 - 593.

[6] Lundgren L, Kindblom LG, Willems J, et al. Proliferative myositis and fasciitis: a light and electron microscopic, cyto-logic, DNA-cytometric and immunohistochemical study [J]. APMIS, 1992, 100(5): 437 - 448.

[7] Choi SS, Myer CM. Proliferative myositis of the mylohyoid muscle [J]. Am J Otolaryngol, 1990, 11(3): 198 - 202.

[8] Dent CD, DeBoom GW, Hamlin ML, et al. Proliferative myo-sitis of the head and neck: report of a case and review of the literature [J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 1994, 78(3): 354 - 358.

[9] Singh A, Philpott JM, Patel NN, et al. Proliferative myositis arising in the tongue [J]. J Laryngol Otol, 2000, 114(12): 978 - 979.

[10] 蒋崇槟,贾志宇. 颌面部增生性肌炎 1 例[J]. 现代口腔医学杂志,2002, 16(2): 175.

[11] 洪碧波,黄汉民,谭旭东. 颈项部增生性肌炎 1 例[J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科杂志,2002, 9(2): 112.

[12] Haloi AK, Seith A, Chumber S, et al. Case of the season: proliferative myositis [J]. Semin Roentgenol, 2004, 39(1): 4 - 6.

[13] Brooks JK, Scheper MA, Kramer RE, et al. Intraoral prolif-erative myositis: case report and literature review [J]. Head Neck, 2007, 29(4): 416 - 420.

[14] Fauser C, Nühlig J, Niedermeyer HP, et al. Proliferative myositis: a rare pseudomalignant tumor of the head and neck [J]. Arch Otolaryngol Head Neck Surg, 2008, 134(4): 437 - 440.

[15] Yigit H, Turgut AT, Koşar P, et al. Proliferative myositis presenting with a checkerboard - like pattern on CT [J]. Di-agn Interv Radiol, 2009, 15(2): 139 - 142.

(修回日期:2012-08-10)

· 读者 · 作者 · 编者 ·

远程投稿、查稿系统启事

本刊采用远程稿件采编系统进行投稿、查稿等,现就有关问题说明如下。

1. 作者投稿:登陆在线投稿系统(中文版),按操作提示投稿。第 1 次需先注册,原则上不再受理邮寄稿件和 Email 稿件。

2. 稿件查询:使用作者注册用户名和密码,可查询作者稿件审理进程和费用信息等。

有关投稿要求,请登陆本刊网站浏览。

网站登陆:<http://www.xyosbs.com/index.htm>。