

- for fracture of the proximal femur and the effect of delays to surgery [J]. *J Clin Epidemiol*, 2003, 56(8): 788-795.
- [4] Orosz GM, Magaziner J, Hannan EL, et al. Association of timing of surgery for hip fracture and patient outcomes [J]. *JAMA*, 2004, 291(14): 1738-1743.
- [5] Moran CG, Wenn RT, Sikand M, et al. Early mortality after hip fracture: is delay before surgery important [J]? *J Bone Joint Surg Am*, 2005, 87(3): 483-489.
- [6] Rae HC, Harris IA, McEvoy L, et al. Delay to surgery and mortality after hip fracture [J]. *ANZ J Surg*, 2007, 77(10): 889-891.
- [7] Smektala R, Endres HG, Dasch B, et al. The effect of time to surgery on outcome in elderly patients with proximal femoral fractures [J]. *BMC Musculoskelet Disord*, 2008, 9: 171.
- [8] Rogmark C, Carlsson A, Johnell O, et al. A prospective randomised trial of internal fixation versus arthroplasty for displaced fractures of the neck of the femur. Functional outcome for 450 patients at two years [J]. *J Bone Joint Surg Br*, 2002, 84(2): 183-188.
- [9] 柳海平, 王承祥, 李盛华, 等. 老年股骨颈骨折的治疗方法选择 [J]. *中国骨伤*, 2009, 22(2): 92-93.
- Liu HP, Wang CX, Li SH, et al. Methods selection for femoral neck fractures in old people [J]. *Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma*, 2009, 22(2): 92-93. Chinese.
- (收稿日期: 2011-01-27 本文编辑: 连智华)

· 病例报告 ·

Kimura 病 1 例报告及相关文献回顾

于本锋, 冯卫, 杨晨, 李叔强, 官宇宝, 齐欣, 刘建国
(吉林大学白求恩第一医院骨关节外科, 吉林 长春 130021)
关键词 Kimura 病; 诊断; 治疗; 病例报告

DOI: 10.3969/j.issn.1003-0034.2011.06.019

Kimura disease: a case report and review of relative literatures YU Ben-feng, FENG Wei, YANG Chen, LI Shu-qiang, GONG Yu-bao, QI Xin, LIU Jian-guo. Department of Orthopaedics, the First Hospital of Jilin University, Changchun 130021, Jilin, China

KEYWORDS Kimura disease; Diagnose; Therapy; Case reports

Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma, 2011, 24(6): 503-504 www.zggszz.com

Kimura 病是一种罕见的主要发生在亚裔未成年人及年轻男性的先天性疾患^[1-3], 主要涉及到皮下组织的炎症, 起初在头颈部, 往往伴有淋巴结病和(或)唾液腺的扩大。目前有报道的惟一全身表现是肾脏受累引起肾病综合征^[2,4-5], 双侧受累少见^[3]。近日收治 Kimura 病患者 1 例, 报告如下。

1 临床资料

患者, 男, 20 岁, 于 2010 年 4 月 3 日前来就诊。该患者 7 年前发现双肘部、右颈部及左腹股沟肿物, 约拇指指尖大小, 质韧, 与周边分界清, 无红肿及压痛, 起初考虑淋巴结肿大, 予口服中药未见明显缓解。此后左肘部肿物逐渐增大, 现肿物约鹌鹑蛋大小, 无疼痛等自觉症状, 同时右肘部、右颈部及左腹股沟肿物逐渐变小, 约黄豆粒大小。患者坚持要求对左肘部肿物手术切除治疗。查体见: 左侧肘关节内上方及下方皮下分别可触及大小约 2 cm×3 cm×2 cm 及 1 cm×2 cm×2 cm 的 2 处肿物, 质韧, 边界清楚, 活动度良好, 与周围组织无粘连, 无红肿及压痛。化验检查: 尿素氮 4.30 mmol/L, 肌酐 77 μmol/L, 尿蛋白阴性, 尿酮体阴性, C 反应蛋白 0.20 mg/L, 血沉 4 mm/H, 嗜酸性粒细胞百分比 0.22%, 嗜酸性粒细胞绝对值 1.31×10⁹。入院后完善术前检查后择期行左肘部肿物切除术, 术中取左肘关节内上方纵行弧形切口, 于肱二头肌及肱三头肌间见 2 处肿

物, 钝性剥离肿物, 见肿物包膜完整, 与周围组织无粘连, 呈实性, 大小约 2 cm×3 cm×3 cm 及 1 cm×3 cm×2 cm。将其完整取出, 切除组织送检快速病理, 快速病理回报为淋巴滤泡增生; 剩余组织送检慢病理, 慢病理回报为淋巴结淋巴细胞和淋巴滤泡反应性增生, 大量嗜酸性粒细胞浸润。病理诊断: Kimura 病(图 1)。

2 讨论

2.1 发病部位、病因及诊断 Kimura 病最常见的临床表现是头颈部一侧无痛性软组织肿块, 唾液腺及淋巴结往往涉及到。其特征是外周血嗜酸性淋巴细胞及血清 IgE 升高^[1-3]。好发于头皮及耳廓周边^[6], 而腹股沟区、腋窝区、肱骨内上髁的淋巴结常不受累^[2,7]。病因及发病机制还未完全明了^[3-5,7], 病因包括创伤, 异常的自身免疫反应, 对寄生虫、病毒、真菌或毒素的过敏反应^[1-3]。但患者(尤其是亚洲男性)表现出临床三联征: 头或颈部的无痛性肿块, 嗜酸性粒细胞增多, 血清 IgE 水平升高。应该高度怀疑该病^[2,8]。肿大的淋巴结在超声下表现为门血管分布及低阻抗, 在诊断该疾病时缺乏特异性^[9]。

2.2 鉴别诊断 需与 Kimura 病相鉴别的疾病为 ALHE (皮下血管淋巴组织增生伴嗜酸性细胞增多)。组织学上, ALHE 是伴有非典型内皮细胞的血管增生, 同时有大部分淋巴细胞及嗜酸性粒细胞的浸润, 而淋巴滤泡也许不会出现。目前该病在数量上很少见, 而且相对于位置表浅的病损来说主要是陈

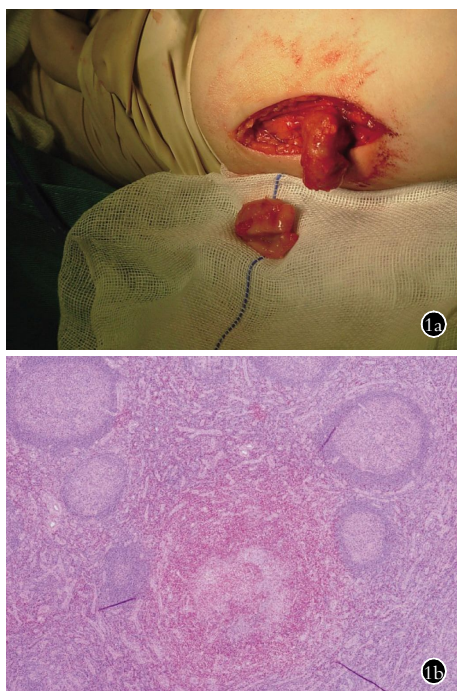


图 1 男, 20 岁, Kimura 病 1a. 术中切除的肿物 1b. HE 染色见淋巴结淋巴细胞和淋巴滤泡反应性增生, 并有大量嗜酸性粒细胞浸润 (×40)

Fig. 1 Male, 20-year-old, Kimura disease 1a. Neoplasm during the operation 1b. HE staining, low-power magnification of soft tissue biopsy specimen demonstrating that lymph node and follicle proliferation, together with eosinophilia infiltrating (×40)

旧性或深部病损。在典型的 Kimura 病中巨细胞、上皮细胞、风湿性肉芽肿很少见, 但会有淋巴滤泡及丰富的纤维组织出现。

2.3 治疗及预后 治疗包括保守治疗、手术治疗、激素治疗及放射治疗。手术治疗是治疗 Kimura 病的一线治疗手段, 尤其是针对年轻患者或局部复发的患者。但有报道认为 Kimura 病由于很少恶变, 也不表现为疼痛, 因此不提倡手术治疗, 可保守治疗^[10]。国内研究认为, 单发肿块可考虑采用手术切除, 术后辅以小剂量放疗和(或)糖皮质激素治疗; 而对多发者可手术结合放疗, 采取切大放小、先放后切的联合治疗, 减少复发^[11]。Kimura 病对放疗敏感而且能够取得良好的局部控制率, 25~35 Gy 剂量的局部放疗针对不愿手术治疗及化疗患者^[12]。肿块在激素治疗缩小后应该立即应用有限区域、低剂量的放射治疗^[13]。Masayuki 等^[14]认为对于 Kimura 病的最适合的治疗方法应该是口服皮质类固醇, 因为该类激素可以减少血清嗜酸性粒细胞而不降低血清 IgE 水平, 而血清中高水平的 IgE 对预防面部肿胀和发热起重要作用, 而且嗜酸性粒细胞的大量聚集会产生大量的 IgE。国内报道本病对激素治疗虽然较敏感, 但激素减量过程中易复发, 因此不宜作为惟一的治疗手段^[15]。Ardavan 等^[16]认为虽然目前还没有 Kimura 病有恶变的报道, 但是发现 1 例患者的特别之处: 肾脏的肿块病理证实为 Kimura 病, 颈部受累, 同时有腮腺、肾脏、甲状腺癌。因此认为 Kimura 病是否会癌变尚待更多的 Kimura 病患者的长期随访及大量的临床检查。

Kimura 病患者往往是在手术切除后被病理证实, 或是穿刺活检后病理检查确诊, 因此手术治疗仍是常用方法, 放疗及激素治疗也能取得良好的效果, 预后良好, 但仍不排除有复发的可能, 复发率为 15%~40%^[8]。

参考文献

[1] Chen H, Thompson LD, Aguilera NS, et al. Kimura disease: a clinicopathologic study of 21 cases [J]. *Am J Surg Pathol*, 2004, 28(4): 505-513.

[2] Chusid MJ, Rock AL, Sly JR, et al. Kimura's disease: an unusual cause of cervical tumour [J]. *Arch Dis Child*, 1997, 77(2): 153-154.

[3] Hiwatashi A, Hasuo K, ShiinLi T, et al. Kimura's disease with bilateral auricular masses [J]. *AINR Am J Neuroradiol*, 1999, 20(10): 1976-1978.

[4] Rajpoot DK, Pahl M, Clark L. Nephrotic syndrome associated with Kimura disease [J]. *Pediatr Nephrol*, 2000, 14(6): 486-488.

[5] Armstrong WB, Allison G, Pena F, et al. Kimura's disease: two case reports and a literature review [J]. *Ann Otol Rhinol Laryngol*, 1998, 107(12): 1066-1071.

[6] Gumbst MA, Pai NB, Saraiya RI, et al. Kimura's disease: a case report and literature review [J]. *J Surg Oncol*, 1999, 70(3): 190-193.

[7] Takahashi S, Ueda J, Furukawa T, et al. Kimura disease: CT and MR findings [J]. *AJNR Am J Neuroradiol*, 1996, 17(2): 382-385.

[8] Deshpande AH, Nayak S, Munshi MM, et al. Kimura's disease. Diagnosis by aspiration cytology [J]. *Acta Cytol*, 2002, 46(2): 357-363.

[9] Ahuia A, Ying M, Mok JS, et al. Gray scale and power doppler sonography in cases of Kimura disease [J]. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2001, 22(3): 513-517.

[10] Song KJ, Lee KB. Kimura's disease occurred in the whole arm [J]. *Joint Bone Spine*, 2008, 75(1): 76-77.

[11] 刘蕊, 刘湘源. 木村病一例并文献复习 [EB]. *中华临床医师杂志(电子版)*, 2008, 2(6): 717-719.

Liu R, Liu XY. Kimura disease: 1 case together with literature review. *Zhonghua Lin Chuang Yi Shi Za Zhi (electronic version)*, 2008, 2(6): 717-719. Chinese.

[12] Varshney MK, Kumar A, Khan SA, et al. Kimura disease of extremity: unusual manifestation in a long bone [J]. *Joint Bone Spine*, 2008, 75(4): 492-494.

[13] Chang AR, Kim K, Kim HJ, et al. Outcomes of Kimura's disease after radiotherapy or non radio therapeutic treatment modalities [J]. *J Radia Oncol Biol*, 2006, 65(4): 1233-1239.

[14] Masayuki SA, Shini CS. Hematoser-ological and analysis of Kimura's disease for optimal treatment [J]. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2005, 132: 159-160.

[15] 韦秀宁, 戴渊, 郑东辉, 等. 木村病 5 例临床分析 [J]. *新医学*, 2009, 40(11): 727-729.

Wei XN, Dai L, Zheng DH, et al. Clinical analysis of Kimura disease 5 cases [J]. *Xin Yi Xue*, 2009, 40(11): 727-729. Chinese.

[16] Ardavan A, Glenn M, Cannon JR, et al. Synchronous unilateral renal cell carcinoma and Kimura disease of the kidney [J]. *Urology*, 2006, 68: 673.

(收稿日期: 2010-12-19 本文编辑: 连智华)