

ОСОБЕННОСТИ ДИАГНОСТИКИ АНГИОЛИМФОИДНЫХ ИНФИЛЬТРАТОВ (АНГИОЛИМФОИДНАЯ ГИПЕРПЛАЗИЯ, БОЛЕЗНЬ КИМУРА) В ЧЕЛЮСТНО-ЛИЦЕВОЙ ОБЛАСТИ

Малаховская А.А., Шувалов С.М.

Винницкий национальный медицинский университет имени Н.И. Пирогова, Винница, Украина

Ключевые слова: болезнь Кимура, ангиолимфоидная гиперплазия, челюстно-лицевая область

Болезнь Кимура является необычным хроническим воспалительным процессом не ясной этиологии с преимущественным поражением мягких тканей челюстно-лицевой области. Она проявляется в виде подкожных инфильтратов в височной, околоушно-жевательной областях с поражением околоушной железы. Более редко поражаются ткани орбиты, верхних конечностей лимфатические узлы шеи. Описана также локализация инфильтрата в окологлоточном пространстве [2]. Впервые, как отдельное заболевание, эта патология была описана китайскими авторами Kimm и Szetov 1937 году [4]. Но свое название болезнь получила после публикации Kimura (Япония) в 1948 [5]. Заболевание встречается, как правило, среди представителей монголоидной расы, редко – африканцев и практически нет описания заболевания среди европейцев.

Случаи ангиолимфоидной гиперплазии также редки [9]. Этиология данного заболевания не ясна и основным проявлением его является появление инфильтратов в периаурикулярной и височной областях. Патогистологической и клинической особенностью данных процессов является появление одного или нескольких очагов в толще кожи височной области и эозинофилией, как местно в толще инфильтрата, так и в периферической крови. При длительном течении заболевания на коже височной области отмечается её истончение и образование свищей периодически самопроизвольно закрывающихся. Гистологически определяются четко очерченные очаги артериовенозных нарушений с лимфоидной инфильтрацией. Данная патология встречается чаще у представителей монголоидной расы, реже – у европейцев.

В сообщениях авторов из Европы и США – с небольшим числом наблюдений подчеркивается различие этих двух патологических состояний, однако в статьях и обзорах из Азии (Китай, Япония, Сингапур, Таиланд) – с большим числом наблюдений часто данная патология описывается как проявления одной и той же болезни [6, 7, 8].

Есть несколько классификаций различных форм лимфо-пролиферативных заболеваний: Кильская, Голландской группы, Эни-Арбор, WF и др.

По классификации EORTC (Европейской организации по изучению и лечению рака) 1997 выявленные нами заболевания можно отнести к Т-клеточным псевдолимфомам

характеризующимися клиноморфологически очаговым характером инфильтрата, мелкими Т-лимфоцитами, эозинофилами и плазматическими клетками, гиперплазией артериол и периваскулярными субэпидермальными лимфо-пролиферативными инфильтратами, микроабсцессами.

Мы не нашли описания данных заболеваний в отечественной литературе и приводим сообщение о двух наблюдаемых нами пациентах с состояниями, вероятно условно, разделяемых как болезнь Кимура и ангиолимфоидная гиперплазия с эозинофилией.

Клиническое наблюдение №1.

Больной Р., 25 лет, история болезни №17133, обратился в клинику челюстно-лицевой хирургии Винницкой областной клинической больницы им. М.И. Пирогова 10.10.05 с жалобами на опухолевидное образование под кожей правой височной области, которое появилось 3 года назад. На протяжении этого времени припухлость оставалась в пределах височной области, не росла, практически не болела, однако отдельные участки кожи и подкожной ткани периодически размягчались, кожа над ними истончалась и на некоторое время формировался свищ со светло-красной жидкостью. Практически без лечения свищи закрывались самопроизвольно.

Общее состояние больного удовлетворительное. Патологических изменений со стороны сердечно-сосудистой и легочной системы не выявлено. Анализ крови: Нв – 114 г/л, СОЭ – 18 мм/час, лейкоциты – 6000, эритроциты – 3,8 млн.; лейкоцитарная формула: нейтрофильные палочкоядерные – 2%, сегментоядерные – 53%, эозинофилы – 3%, моноциты – 7%, лимфоциты – 35%.

Status localis. Незначительно выражена асимметрия лица за счёт выбухания и отёчности кожи правой височной и скуловой области. На коже правой височной области над верхним краем завитка уха и над скуловой дугой имеются свищевые ходы размером 0,2*0,3 см с очагами размягчения вокруг их размером 2,0*2,0 см. При пальпации отмечается плоский плотный инфильтрат с чёткими границами, занимающий передние две трети височной области (рис. 1, 2).

На компьютерной томограмме от 12.10.05 определяется утолщение подкожной клетчатки и височной мышцы справа с несколькими дефектами в проекции мышцы.



Рис. 1. Больной Р., 25 лет.
Инфильтрация и отёк правой височной области



Рис. 2. Больной Р., 25 лет. Состояние после операции.
Видна линия разреза в височной области и гиперемизовані частки шкіри в області удаленных свищей.



Рис. 3. Очаг хронического продуктивного воспаления в височной мышце. Окраска гематоксилин-эозин. Увеличение *40. Среди разволокнённых мышечных тканей определяется очаг скопления нейтрофилов с повышенным количеством эозинофилов и плазматических клеток.

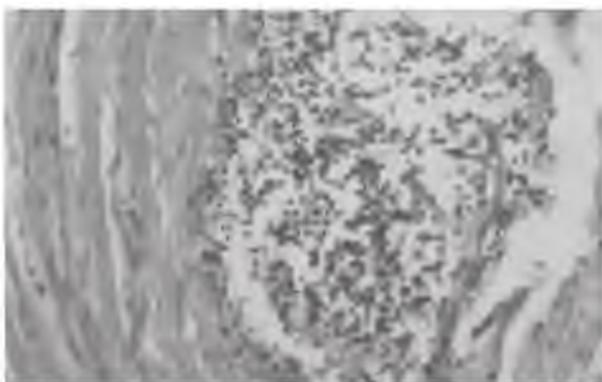


Рис. 4. Тот же препарат. Увеличение *100.

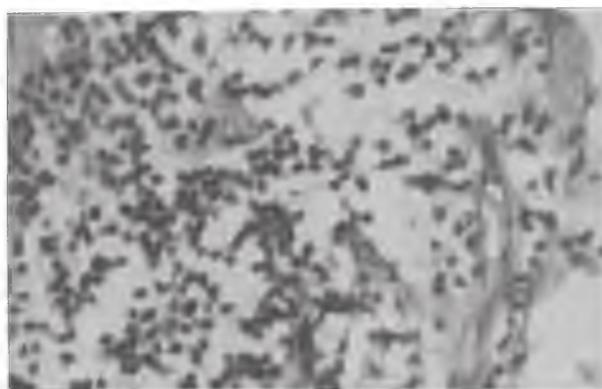


Рис. 5. Тот же препарат. Увеличение *400. Очаг хронического воспаления с преобладанием лимфоцитов, нейтрофилов и включением эозинофилов и плазматических клеток. Формирование микроабсцессов. Сосудистая пролиферация.

Учитывая давность заболевания, его хроническое рецидивирующее (очаги инфильтрации и размягчения) течение и неопределенность диагноза было принято решение о проведении расширенной биопсии и удалении патологического очага. Операция произведена 18.10.05г. под эндотрахеальным наркозом. Полукружным разрезом был отпрепарирован лоскут в височной области с иссечением участков истонченной кожи. В проекции передних двух третей височной мышцы были выявлены несколько очагов размягчения, напоминающих грануляционную ткань, прободающих поверхностный апоневроз и височную мышцу до кости. Края видимых дефектов четкой округлой формы размером 0,3*0,5см. Передние две трети пораженной мышцы были удалены с подкожной клетчаткой.

Результаты гистологического исследования (рис. 3, 4, 5).

Послеоперационный период протекал без осложнений. Из стационара больной был выписан через 10 дней после операции в удовлетворительном состоянии. При выписке на фоне нормализующихся показателей периферической крови отмечалась незначительная эозинофилия – 4%.

Затрудняясь отнести данное патологическое состояние к какому-либо известному нам заболеванию пациент был выписан с диагнозом “Иммунопролиферативный инфильтрат правой височной области”. В течение двух лет возврата клиники болезни не наблюдалось.

Клиническое наблюдение № 2.

Больная Т., 36 лет, обратилась 21.05.07 история болезни № 9548 обратилась в клинику челюстно-лицевой хирургии с жалобами на припухлость в правой височной, подглазничной и скуловой областях, отёк век, незначительные боли в области виска, выделение слюны с горьким привкусом.

Заболела около двух недель назад, когда без видимой причины появился отёк правой височной и подглазничной

областей. Отмечался кратковременный (1-2 дня) подъём температуры тела до 37,1-37,3. Принимала некоторые антибиотики бессистемно, улучшения не наступило.

При поступлении общее состояние больной удовлетворительное. Температура тела нормальная. Сопутствующих заболеваний не выявлено.

При осмотре выявлена асимметрия лица за счет отека кожи правой височной подглазничной и околоушно-жевательной областей, инфильтрации тканей височной области (рис. 6).

При пальпации правой височной области в проекции правой поверхностной височной артерии на расстоянии двух сантиметров над скуловой дугой пальпируется плотный, немного болезненный, продолговатый, размером 3,0*1,0см инфильтрат.

В полости рта определяется увеличенное устье выводного протока правой околоушной железы. При массаже железы из протока выделилась капля чистой слюны (рис. 7).

При магнитно-резонансной томографии черепа № 1899 от 22.05.07 выявлено увеличение височной и жевательной мышц (рис. 8, 9).

Была произведена пункция инфильтрата височной области с последующим цитологическим исследованием № 274 от 25.05.07 (рис. 10).

Среди эритроцитов наблюдаются скопления лимфоцитов (от 4 до 18 в поле зрения), эозинофилов (от 6 до 25 в различных полях зрения), макрофаги, плазматические клетки, гистиоциты (1-3 в поле зрения).

При первичном обследовании 22.05.07 в периферической крови на фоне нормальных показателей выявлено



Рис. 6. Больная Т., 36 лет. Отёк и инфильтрация тканей височной области и отёк верхнего и нижнего века. Глазная щель несколько расширена.



Рис. 7. Больная Т., 36 лет. Увеличение и отёчное устье выводного протока правой околоушной железы.

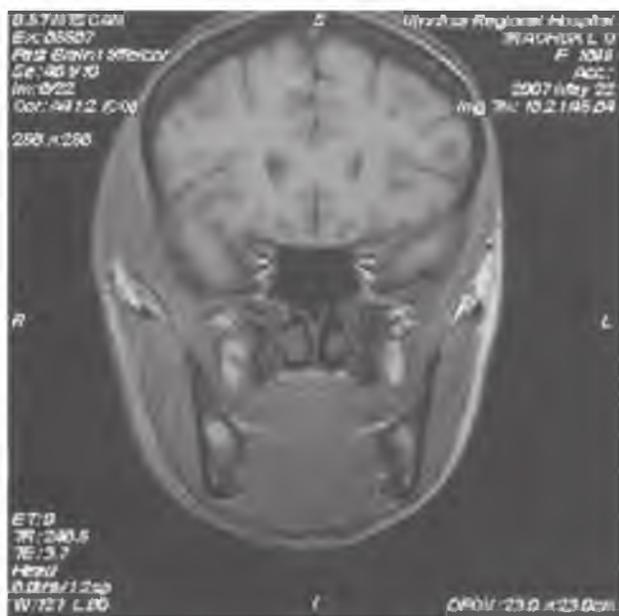


Рис. 8, 9. Магнитно-резонансная томография головы. Сканы 5 и 6. Увеличение височной и жевательной мышц с элементами их расслоения, неоднородностью и усилением сосудистого рисунка и признаками воспаления (повышение интенсивности МР сигнала на томограммах в режиме STIR)

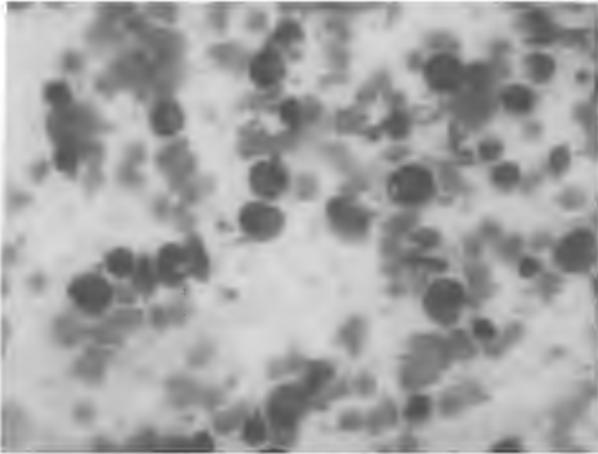


Рис. 10. Цитограмма пунктата инфильтрата правой височной области.

ускорение СОЭ до 38 мм/час и эозинофилия – 16%. В иммунограмме отмечено увеличение фагоцитарной активности лейкоцитов, титра комплимента и иммуноглобулинов Е и М.

Учитывая относительно лёгкое течение заболевания, его незначительную продолжительность пациентке было проведено консервативное лечение: лораксон по 1 гр. 2 раза в день внутривенно – 8 дней; метрогил 100ml в/в 2 раза в день – 6 дней; наклофен 3ml внутримышечно – 3 дня; лоратадин – 10 дней.

В течение 7-10 дней от начала лечения отёк и инфильтрация тканей височной области исчезли (рис. 11).

Устье выводного протока приобрело обычную форму, привкуса горечи во рту не стало. Однако при пальпации в правой височной области под кожей пальпировалось тугоэластичный продолговатый инфильтрат. В периферической крови отмечено снижение ШОЭ до 16мм/час, однако эозинофилия практически не изменилась – 14% (ан. крови от 31.05.07 – 10 день лечения). В течение двух месяцев возврата болезни не отмечено.

Обсуждение результатов.

Диагностика и лечение двух данных состояний у пациентов было для нас сложной задачей. Анализируя результаты клинических и лабораторных исследований больного Р., 25 лет (клиническое наблюдение № 1) и сопоставляя их с данными литературы можно сделать заключение о преобладании симптомов ангиолимфоидной гиперплазии височной области, в то время как во втором случае (больная Т., 36 лет) больше данных за болезнь Кимура. В обоих случаях в периферической крови была выявлена эозинофилия различной степени. Для ангиолимфоидной гиперплазии характерно внутрикожное первичное расположение очага хронического воспаления [6]. В нашем наблюдении у больного Р., с длительностью заболевания 3 года, была повреждена не только кожа и подкожная клетчатка, но и височная мышца в нескольких местах. Поражение височной области и околоушной железы (больная Т.) характерно для болезни Кимура, однако мы не наблюдали характерной лимфаденопатии лимфатических узлов шеи описываемой большинством авторов [3,6,8]. Отсутствие этого симптома, вероятно, связано с небольшим сроком от начала заболевания (2 недели).

Определённых рекомендаций по лечению этих заболеваний нет. Большинство авторов предлагают хирургическое вмешательство как для лечения, так и для диагностики патологического процесса. Проведение операций может быть ограничено сложностью локализации инфильтратов – веки, слезные железы, окологлоточное пространство [2,8]. Наиболее часто описываемой операцией является паротидэктомия (в случаях, когда железа хронически гипертрофирована). Мы произвели расширенную биопсию в височной области. В литературе имеются сообщения об эффективности лучевой, крио- и гормональной терапии, однако в последнем случае велика вероятность возврата болезни [1,3,6,7,8].

Во втором случае нами было проведено консервативное лечение с применением антибиотиков, нестероидных противовоспалительных и противоаллергических препаратов. Они оказались достаточно эффективными при начальных стадиях заболевания.

Назначение гормональных препаратов вероятно, оправдано при упорных длительно текущих заболеваниях и частых возвратах болезни [1].

Для диагностики данных заболеваний важное значение имеет гисто- и цитологическое исследования, магниторезонансная и компьютерная томографии, а также данные периферической крови об эозинофилии и повышении уровня иммуноглобулинов М и Е.

Выводы:

1. Выделение двух заболеваний – ангиолимфоидной гиперплазии и болезни Кимура в большей степени имеет значение для патогистологии и меньшей – для клиники.
2. Выбор метода лечения зависит, прежде всего, от клиники и давности заболевания.
3. Оценка эффективности диагностики и лечения требует длительного дальнейшего изучения.

Рецензент: чл.-кор. НАМН Украины, д.мед.н., профессор Маланчук В.О.

ЛИТЕРАТУРА:

1. Day T.A. Treatment of Kimura's disease: A therapeutic enigma / T.A. Day, F.Abreo, D.K. Hoajsoe // *Otolaryngol. Head and Neck Surg.* – 1995. – Vol. 12. – P 333-337.
2. Goh Hood Kimura's disease of the parapharyngeal space. / Hood Goh, C.Keng, K.Pang, P.Teng // *Ear Nose Throat J.* – 2006. – Vol. 85. – P. 106-108.
3. Jani A. Kimura's disease: A typical case of a rare disorder / A.Jani, M.Coulson // *West J Med.* – 1997. – №166. – P. 142-144.
4. Kimm H.T. Eosinophilic hyperplastic lymphogranuloma, comparison with Mikulicz's disease / H.T.Kimm, C.Szeto // *Proc. Clin. Med. Soc.* – 1937. – Vol. 1. – P. 329-331.
5. Kimura T. Unusual granulation combined with hyperplastic change of lymphatic tissue / T.Kimura, S.Yoshimura, E. Ishikawa // *Trans SocPatholJpn.* – 1948. – Vol. 37. – P 179-180.
6. Kuo T.T. Kimura's disease: Involvement of regional lymph nodes and distinction from angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia / T.T.Kuo, L.Y.Shih, H.L. Chan // *AM.J.Surg.Pathol.* – 1988. – Vol. 12. – P 843 – 854.
7. Li T. Kimura's disease: a clinicopathologic study of 54 Chinese patients / T. Li, X. Chen, S. Wang // *Oral*

Surg., Oral Pathol., Oral Radiolog. -1996.-Vol 82 (5) - P. 549-555.

8. Meningaud J-P. Kimura's disease of the parotid region: report of 2 cases and review of the literature/ J-P.Meningaud, P.Pitak – Arnноп, P.Fouret, J-C. Bertrand //

Journal of Oral and maxilla-facial Surgery. – 2007. – Vol.65 – № 1. – P. 134-140.

9. Wells GC, Whimster IW Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia / GC Wells, IW Whimster// *BRJ Dermatol-* 1969. – Vol. 81. – P. 1-14.

**ОСОБЛИВОСТІ ДІАГНОСТИКИ
АНГІОЛІМФОЇДНИХ ІНФІЛЬТРАТІВ
(АНГІОЛІМФОЇДНА ГІПЕРПЛАЗІЯ, ХВОРОБА
КІМУРА) У ЩЕЛЕПНО-ЛИЦЬОВІЙ ОБЛАСТІ**

Малаховська А.А., Шувалов С.М.

*Вінницький національний медичний університет
імені М.І. Пирогова, Вінниця, Україна*

Резюме. Описані випадки ангіолімфоїдної гіперплазії і хвороби Кімура у європейців. Зроблено висновки про те, що виділення двох схожих захворювань більшою мірою має значення для гістології і в меншій – для клініки. Вибір методу лікування залежить, насамперед, від клініки і давності захворювання.

Ключові слова: хвороба Кімура, ангіолімфоїдна гіперплазія, щелепно-лицьова область.

**FEATURES OF DIAGNOSIS OF ANGIOLYMPHOID
INFILTRATES (ANGIOLYMPHOID HYPERPLASIA,
KIMURA'S DISEASE) IN MAXILLO-FACIAL REGION**

Malahovskaya A.A., Shuvalov S.M.

*Vinnitsa N.I.Pirogov National Medical University,
Vinnitsa, Ukraine*

Summary. There are cases angiolymphoid hyperplasia and Kimura's disease at Europeans. Are drawn conclusions that allocation of two similar diseases in a greater degree matters for histopatology and in smaller – for clinic. The choice of a method of treatment depends first of all from clinic and prescription of disease.

Keywords: Kimura's disease, angiolymphoid hyperplasia, maxillo-facial region.