

原文題目(出處):	Kuttner tumor involving minor salivary glands in a patient undergoing radiotherapy in the head and neck
原文作者姓名:	Bruno Correia Jham, Addah Regina Silva Freire, Joao Batista da Silveira-Junior, Maria Cassia Ferreira de Aguiar, Ricardo Alves Mesquita
通訊作者學校:	Department of Oral Surgery, Medicine and Pathology, School of Dentistry, Federal University of Minas Gerais, Brazil
報告者姓名(組別):	鄭羽婷 (B組)
報告日期:	96. 01. 22

內文:**Summary:**

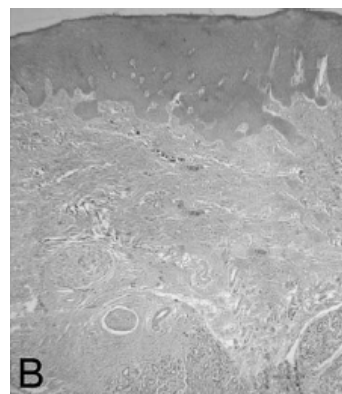
Kuttner tumor(KT)1896年在德國首先由Kuttner發現。主要好發在submandibular gland，臨床症狀為彈性、疼痛的腫脹。KT值得注意的是，臨床上，看起來很像唾腺腫瘤(salivary gland neoplasm)。組織學上，特徵是漸進式管道周圍硬化(progressive periductal sclerosis)，腺泡萎縮，淋巴球浸潤。所以KT的正確的診斷要靠淋巴球次型(subtype)的免疫組織化學分析(immunohistochemical analysis)。本篇case為病患在接受頭頸部放射治療的同時，在小唾腺體(minor salivary gland)有KT的侵犯。

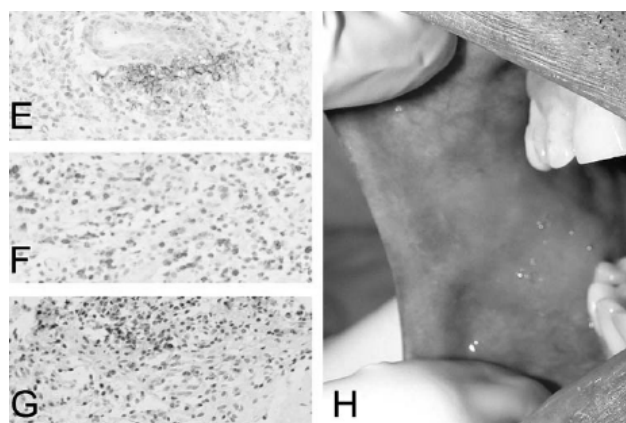
Introduction:

好發在submandibular gland，中年人，症狀具有彈性且疼痛的腫脹。因為臨床表徵和腫瘤很像，被歸類在唾腺的tumor-like lesion。組織學上，特徵是漸進式管道周圍硬化(progressive periductal sclerosis)，腺泡萎縮(acinar atrophy)，腺體會被淋巴球浸潤。最近的研究顯示以T淋巴球反應(T lymphocyte immune reaction)為主。本篇期刊主要討論一位病患在接受頭頸部放射治療的同時，在小唾腺體(minor salivary gland)有KT的侵犯。

Case report:

病患是33歲的男性白人，被轉診到Minas Gerais大學牙醫學院口腔腫瘤部門接受牙科治療。病患曾經動了眼瞼(palpebra)的鱗狀上皮癌的手術，醫師建議他做放射線治療，療程為31次。在第24次放療過程中發現，在右頰黏膜有黏膜下腫脹的情形，臨床診斷為inflammatory fibrous hyperplasia。病患繼續接受七次的放療，當他回診後發現在右頰黏膜上有個大小為3公分的腫脹，表面有三個結節，顏色正常，沒有症狀(圖A)。





臨床診斷為間質腫瘤(mesenchymal neoplasm)同時也做了切片檢查。

組織學檢查可見：

1. 口腔黏膜和一些小唾液腺和單核球的浸潤(monocytic infiltrate)(圖BC)
2. 唾腺管道旁有單核細胞浸潤(periductal monocytic cells infiltrate)，為淋巴球和漿細胞。有管道擴大，腺泡(acini)萎縮(圖C, D)的現象。
3. 用石蠟包埋的組織在免疫染色後，顯示出有CD20, VS38C, CD3, CD45RO, CD8的T細胞抗原反應
4. 所有的單核細胞對於免疫染色的抗體都有反應，主要是以T細胞抗原反應(CD45RO, CD3, CD8)最明顯(圖E~G)。
5. 診斷為：慢性硬化唾腺炎的第一期(Chronic sclerosing sialadenitis, stage 1)。剩餘的病灶在十天之內自動復原。追蹤18個月後，沒有復發的情形。

Discussion:

這個case從臨床、組織切片、免疫組織化學的特徵我們確定是KT。近來，KT這種病灶的辨認和病變過程越來越受到重視。KT在臨床上的表徵從無痛腫脹到反覆的疼痛都有可能，有些學者指出KT只會侵犯submandibular gland。不過，最近有報告指出，KT有機會侵犯到parotid gland，而且有可能同時侵犯parotid gland和submandibular gland；也有機會同時侵犯雙側的parotid gland和submandibular gland以及minor salivary gland。本篇的case是首例KT侷限在minor salivary gland。

KT的鑑別診斷需要組織切片和免疫組織化學的檢查，Seifert和Donath將這個疾病分成四個階段。我們的case是處在stage 1：局部管道旁有淋巴球浸潤，管徑擴張，腺泡萎縮。為了更確定診斷，使用immunophenotyping作鑑別診斷，看到許多T細胞。同樣的，許多研究顯示有CD3, CD4, CD8 T細胞抗原反應。

KT的鑑別診斷包括simple chronic sialadenitis, granulomatous sialadenitis, necrotizing sialometaplasia, sialolithiasis, inflammatory pseudotumor, benign lymphoepithelial lesions和輻射效應(radiation effects)。根據免疫組織化學染色，simple chronic sialadenitis的特徵是以B細胞為主和少數的T細胞，可以和KT作區別。

治療方式為切除感染的腺體，我們的case追蹤結果，病灶incision以後剩餘的部分自行好轉。追蹤18個月沒有病狀出現。

KT的致病因子仍然是未知。最可能的解釋是可能和唾液腺結石或持續性的管道阻塞有關。除了結石，感染源的影響和分泌失調、管道異常、免疫反應(immune processes)可能都有關係。以這個case而言，病灶的發生可能和放射治療改變唾液分泌量有關，另外，可能和直接對唾腺造成的傷害有關。這是首例由放射治療

造成KT的病例，可歸類在由頭頸部放射線治療引起口腔病灶的範圍。

這個病例是侷限在小唾液腺範圍，就我們所知沒有類似的病例報告。此外這可能是首例由放射線治療引起的case。

題號	題目
1	有關sialolithiasis的敘述，何者錯誤？ (A) Sialoliths可以在minor salivary gland發現，特別是以upper lip and buccal mucosa居多 (B) 結石的成因和全身系統性的鈣磷代謝無關 (C) Sialoliths發生在parotid gland的機率比submandibular gland大 (D) 比較小的結石可以試著用massage的方式推出開口，太大的話要考慮手術取出
答案 (C)	出處：Oral & maxillofacial pathology, Neville et al, p. 393
題號	題目
2	有關benign lymphoepithelial lesion敘述，何者錯誤？ (A) 顯微鏡下可見許多淋巴球浸潤 (B) 由Mikulicz提出，又稱作Mikulicz disease, 臨床特徵是雙側的parotid gland和lacrimal gland腫大, 有口乾和眼乾的症狀 (C) 屬於自體免疫疾病，若由其他疾病引起的腺體腫脹，例如tuberculosis, lymphoma, sarcoidosis, 稱為Mikulicz syndrome (D) 好發在中年男性，不會有疼痛的感覺
答案 (D)	出處：Oral & maxillofacial pathology, Neville et al, p. 399