

盆最常见);发热、皮疹等^[4-5]。该病累及淋巴结常需要与淋巴瘤、窦组织细胞增生症伴巨块淋巴结病、肉瘤、皮肤转移癌相鉴别,累及甲状腺者临床表现不明显,甲状腺功能正常或减退^[6-7]。

本例患者有甲减病史,超声与 MR 均误诊为淋巴瘤。淋巴瘤超声表现为椭圆形,表面光滑,极低回声淋巴结,门部消失,彩色多普勒显像(CDFI)示血流信号极其丰富,以门型血流常见,超声造影表现为动脉期淋巴瘤淋巴门常显示不清,总体表现为实质弥漫性雪花点样增强,随即融合成高增强;LCH 累及淋巴结、甲状腺超声表现为皮下软组织内等回声肿块,形态不规则,未见包膜,常间杂斑点状强回声及弱回声区,甲状腺内见弥漫分布不规则低回声区,边界不清,形态不规则,声像图与桥本甲状腺炎相似,超声造影表现皮质区被膜下血管首先增强,10~25 s 实质增强但不均匀,表现为周边自外向内开始的非均匀性高增强^[8-9]。

LCH 累及甲状腺常需要与桥本甲状腺炎、毒性弥漫性甲状腺肿、弥漫硬化型甲状腺乳头状癌等相鉴别。桥本甲状腺炎超声显示,甲状腺实质内网格样高回声间杂低回声,伴随疾病进展,甲状腺内可见多个大小不等结节样回声,LCH 累及甲状腺超声甲状腺与周围组织分界不清,以等低回声多见;毒性弥漫性甲状腺肿超声表现血流异常丰富,呈典型火海征,LCH 多表现为星点状血流信号;弥漫硬化型甲状腺乳头状癌超声表现为低回声或混合回声团,边界模糊,微钙化多见,LCH 微钙化少见^[10-11]。虽然 LCH 累及甲状腺超声表现并不具有特异性,但结合超声造影、超声引导下甲状腺细针穿刺活检等多模态技术综合应用有助于该病变的检出。

参考文献

[1] 马宏浩,王天有,张莉,等. 儿童甲状腺受累的朗格罕细胞
• 短篇及病例报道 • doi:10.3969/j.issn.1671-8348.2019.03.048

组织细胞增生症 8 例临床分析[J]. 中华实用儿科临床杂志,2017,32(20):1552-1555.
[2] 邱乾德. 孤立性甲状腺朗格罕细胞组织细胞增生症 1 例[J]. 放射学实践,2009,24(11):1231.
[3] 王涛,苏蓓蓓,韩大伟,等. 122 例朗格汉斯细胞组织细胞增生症临床分析[J]. 中国医学科学院学报,2017,39(2):206-210.
[4] 王嘉怡,黄儒霖,陈峥嵘. p16 基因在朗格罕细胞组织细胞增生症发病机制中的作用[J]. 广东医学,2013,34(20):3145-3147.
[5] JOLIE K, MILEN M D, ANGELA G, et al. Langerhans cell histiocytosis in children diagnosis, differential diagnosis, treatment, sequelae, and standardized follow-up[J]. J Am Acad Dermatol June,2018,78(16):1047-1056.
[6] 董养珍,李周强. 肺朗格罕细胞组织细胞增生症的 CT 表现(附 4 例病例报告及文献回顾)[J]. 实用放射学杂志,2013,29(11):1880-1881.
[7] 王晶,李泉水,邓水平,等. 眼眶朗格罕细胞组织细胞增生症超声表现 1 例[J]. 中国超声医学,2012,28(6):500.
[8] 张莉,廉红云,马宏浩,等. 儿童朗格罕细胞组织细胞增生症 217 例临床分析[J]. 中华实用儿科临床杂志,2017,32(15):1142-1143.
[9] 泥永安,孙立荣. 朗格汉斯细胞组织细胞增生症治疗进展[J]. 临床儿科杂志,2015,33(3):291-294.
[10] 张莉,廉红云,马宏浩. 单器官受累朗格罕细胞组织细胞增生症 112 例[J]. 中华实用儿科临床杂志,2016,31(15):1172-1174.
[11] 郭万学,燕山,王志刚,等. 超声医学[M]. 6 版. 北京:人民军医出版社,2011:1081-1085.

(收稿日期:2018-07-06 修回日期:2018-09-19)

头颈部 Rosai-Dorfman 病 4 例及文献复习

倪红丽¹,高 珊²,易庆川²,涂厚义²,梁国庆²,徐 勤³,周光耀^{1△}
(1. 四川大学华西医院耳鼻咽喉头颈外科,成都 610041;2. 四川省自贡市第四人民医院
耳鼻咽喉头颈外科 643000;3. 四川省自贡市第四人民医院肿瘤科 643000)

[中图法分类号] R762 [文献标识码] C [文章编号] 1671-8348(2019)03-0535-06

Rosai-Dorfman 病又名窦组织细胞增生伴巨大淋巴结病(SHML),是一种少见的病因不明但具有明显病理特征的淋巴组织增生性病变,常发生于淋巴结内,结外少见,患者有时会出现发热、血沉加快、白细胞增多等表现。多数病例发生于淋巴结内,为结内型;少数只有淋巴结外病变而无淋巴结病变者称为结

外型;二者均发生为混合型^[1]。由于该病缺乏特异性的临床表现,临床容易误诊,与头颈部急性炎症、特异性感染及肿瘤表现极其相似,早期明确诊断对及时合理治疗及正确的预后判断具有重要意义。现回顾性分析 2012 年 7 月至 2016 年 8 月自贡市第四人民医院耳鼻咽喉头颈外科收治的 4 例头颈部 Rosai-Dorfman

病手术患者的临床资料,并对其进行系统阐述及相关文献复习,分析探讨该病在头颈部发病的临床病理特征、鉴别诊断及预后判断要点,以提高对该病的认识。

1 临床资料

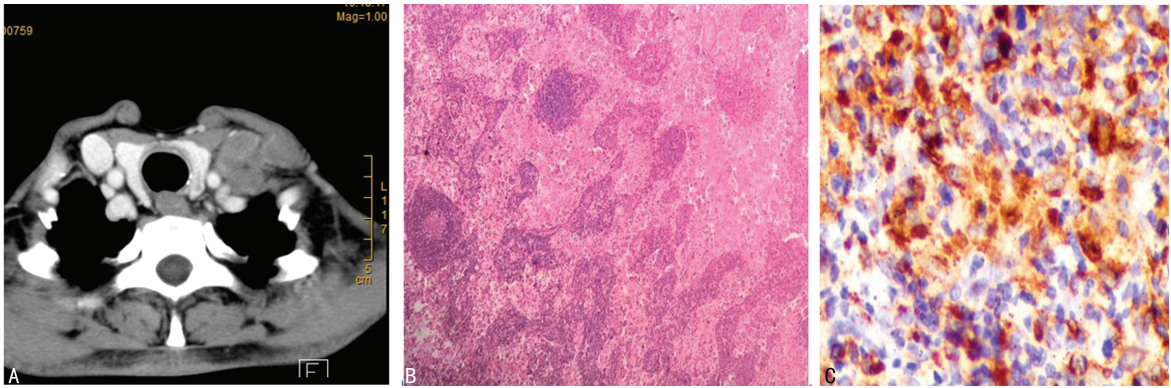
例 1,男,16 岁,因发现颈部包块进行性生长 1 年入院,入院前患者伴包块疼痛及间歇性发热,无耳鸣、耳闷及听力下降,无潮热、盗汗、体质量减轻等不适,包块逐渐长大。查体:颈部双侧胸锁乳突肌深部中上份触及多发淋巴结肿大,最大者位于右侧胸锁乳突肌中份,约 $2.0\text{ cm} \times 2.0\text{ cm} \times 1.5\text{ cm}$ 大小,融合质地较硬,移动度差,表面皮肤无充血破溃,轻压痛。颈部增强 CT 检查发现颈部双侧胸锁乳突肌深面、颈鞘周围、颈后三角多发结节软组织影,右侧为主,大小约 $1.9\text{ cm} \times 1.7\text{ cm} \times 1.3\text{ cm}$,密度不均匀,边界欠清楚,增强后不均匀强化,考虑颈部双侧多发淋巴结肿大,不排除感染或淋巴瘤可能(图 1A),彩超示颈部多发淋巴结肿大,实验室检查示白细胞 $8.32 \times 10^9/\text{L}$,红细胞 $4.56 \times 10^{12}/\text{L}$,血红蛋白 134 g/L ,血小板 $189 \times 10^9/\text{L}$,中性粒细胞 $5.63 \times 10^9/\text{L}$,淋巴细胞 $1.66 \times 10^9/\text{L}$,单核细胞 $0.71 \times 10^9/\text{L}$ 略升高,超敏 C 反应蛋白(20 mg/L)升高,结核抗体阴性。入院诊断颈部淋巴结肿大伴感染。全身麻醉下行颈部淋巴结取活检术,术后无特殊治疗。术后病理回报示镜下见深浅染色区域交错,深色区为大量淋巴细胞及浆细胞构成,浅色区为片状分布大体积大细胞,其内可见“伸入现象”,诊断窦组织细胞增生伴巨大淋巴结病,即 Rosai-Dorfman 病(图 1B)。免疫组织化学结果:S-100 及 CD68 阳性,CD1a、CD15、HMB45、CD21、LGA 及 CD3 为阴性,Ki-67 指数约 10%(图 1C)。出院诊断颈部 Rosai-Dorfman 病结内型。

例 2,女,56 岁,因发现右颈部包块入院,入院前自感颈部包块处疼痛,伴咽喉部异物感进行性加重,偶伴腹痛及发热,无畏寒盗汗、无腹泻便秘及体重减轻等不适,查体颈部右侧胸锁乳突肌中上份深部、右侧锁骨上及颈部触及多发淋巴结肿大,最大者位于右侧胸锁乳突肌中份深部约 $3.0\text{ cm} \times 2.0\text{ cm} \times 1.5\text{ cm}$ 大小,质中固定轻压痛,口咽部黏膜慢性充血,右侧扁桃体 II°大,表面呈淡红色,尚光滑,未见充血渗出,左侧扁桃体不大。会厌舌面双侧近会厌谷处及舌根部可见隆起,左侧明显(图 2A)。增强 CT:颈部双侧多发淋巴结肿大(图 2B)、双侧肺多发结节肿块影,考虑肿瘤可能性大(不排除肺癌伴肺内转移),胸骨及周围改变,肝脏及右肾上腺占位,考虑转移可能性大。正纯蛋白衍生物(PPD)阴性,结核抗体阴性,彩超发现颈部、腹股沟、腋窝多发淋巴结肿大,骨髓质未见分界,结构异常。其余实验室检查均未见异常。入院诊断淋巴瘤待排除。全身麻醉下行颈部淋巴结取活检

术,术后无特殊治疗。术后病理回报示镜下见深浅染色区域交错,深色区为大量淋巴细胞及浆细胞构成,浅色区为片状分布大体积大细胞,其内可见“伸入现象”,诊断 Rosai-Dorfman 病(图 2C)。免疫组织化学结果:S-100 及 CD68 阳性,CD1a、CD15、CD21 及 CD3 为阴性(图 2D)。出院诊断:颈部 Rosai-Dorfman 病混合型,患者出院后近 3 年来会厌舌面及舌根部淋巴组织增生完全消失,颈部淋巴结肿大完全消失,腹股沟及腋窝淋巴结肿大消失,但腹痛次数逐渐频繁,无腹泻及便秘。1 年前复诊行 PET-CT 检查发现右肺中叶、左侧锁骨、纵隔、双肺门及肠系膜多发淋巴结肿大伴糖代谢增高,肝内多发结节状低密度影、胸骨体骨质密度增高结构紊乱,糖代谢增高,PET-CT 报告考虑以上病灶符合 Rosai-Dorfman 病结外型器官受累伴恶变(图 2E),患者病情较入院时加重,转入肿瘤科治疗。

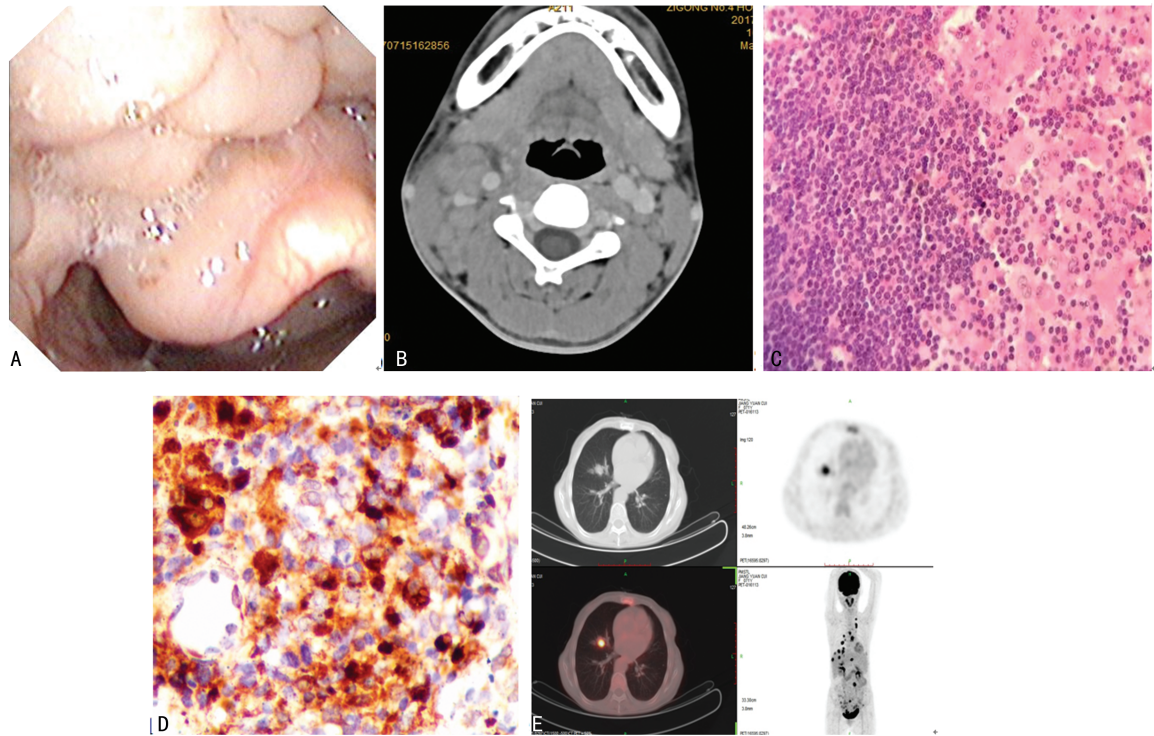
例 3,女,63 岁,因为反复呼吸困难 7 年入院,入院前无明显诱因出现反复憋气,在当地医院就诊,按“哮喘”治疗,症状无缓解,无声嘶及吞咽困难等特殊不适,在本科行电子鼻咽喉镜检查发现声门下偏左侧可见淡红色光滑肿物(图 3A),既往史无特殊。查体:颈部及全身未触及淋巴结肿大。行颈部增强 CT 见声门及声门下肿块影,欠均匀,强化明显,边界不清,伴气道狭窄,考虑肿瘤(图 3B)。实验室检查均未见异常。入院诊断喉肿物,全身麻醉支撑喉镜下喉肿物切除术(行先驱气管切开术),术后给予连续 3 d 布地奈德混悬剂雾化吸入治疗。术中冰冻病理考虑良性肿瘤可能性大,术后病理显示深浅染色区域交错,分化良好浆细胞浸润及胞质丰富,伴吞噬淋巴细胞现象,病理学诊断为 Rosai-Dorfman 病(图 3C)。免疫组织化学结果:组织细胞为 S-100 阳性,CD68PGM 阴性,浆细胞为 Kappa 阳性、Lambda 为强阳性,淋巴细胞为 CD20 阳性,散在分布小淋巴样细胞为 CD3ε 阳性。患者恢复良好,顺利拔管出院,出院诊断:喉 Rosai-Dorfman 病结外型。

例 4,男,46 岁,因为持续性声嘶 1 年入院,入院前无特殊不适,在门诊行电子鼻咽喉镜检查,声带前联合处可见淡红色圆形光滑肿物(图 4A),既往病史无特殊。查体颈部及全身未触及淋巴结肿大。未行各种影像学检查,实验室检查均未见异常。入院诊断喉肿物,全身麻醉支撑喉镜下喉肿物切除术,术后布地奈德混悬剂雾化吸入治疗。术后病理示可见分化良好浆细胞浸润及胞质丰富,可见有吞噬淋巴细胞现象,病理学诊断 Rosai-Dorfman 病(图 4B)。免疫组织化学结果:组织细胞为 S-100 阳性、CD68PGM 为阴性,浆细胞为 Kappa 阳性。患者恢复良好,出院诊断:喉 Rosai-Dorfman 病结外型。



A:增强 CT 示颈部左侧多发淋巴结肿大伴融合,密度欠均匀,边界不清;B:切除后病变区域深浅染色区交替,深色区为聚集的浆细胞及淋巴细胞,浅染色区为椭圆形大组织细胞(HE,×40);C:免疫组织化学 S-100 阳性,胞质呈棕色(×200)

图 1 例 1 患者检查图片



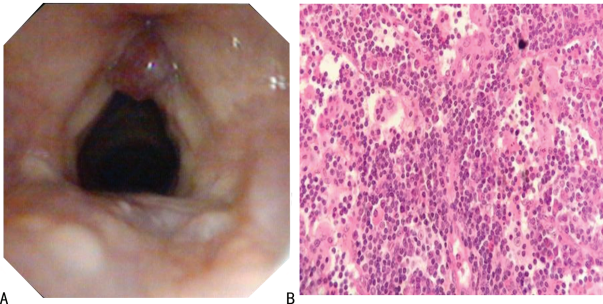
A:电子喉镜检查显示舌根部淋巴组织增生明显,会厌舌面肿胀;B:增强 CT 示颈部右侧多发淋巴结肿大,密度欠均匀,边界不清;C:椭圆形大组织细胞胞质(HE,×100);D:免疫组织化学 CD68 阳性,胞质呈棕色(×200);E:PET-CT 示右肺中叶外侧段及下叶背段结节,糖代谢增高

图 2 例 2 患者检查图片



A:电子喉镜检查显示左侧声门下淡红色新生物,不随呼吸上下移动;B:增强 CT 示左侧声门下占位,声门下呈缝隙状;C:切除后病变区域深浅染色区交替,深色区为聚集的浆细胞及淋巴细胞,伴不同程度纤维化,浅染色区为大组织细胞(HE,×40)

图 3 例 3 患者检查图片



A: 电子喉镜检查显示前联合淡红色新生物, 表面光滑; B: 大组织细胞胞质丰富(HE, ×100)

图 4 例 4 患者检查图片

2 讨 论

Rosai-Dorfman 病是一种具有特殊临床和病理特征的良性组织淋巴细胞增生性疾病, 又名罗道病, 临床罕见, 常发生于淋巴结内, 结外少见, 且报道多以全身各部位皮肤多发。

本组病例中, 例 2 患者出院后随访会厌舌面及舌根部淋巴组织增生完全消失, 颈部淋巴结肿大完全消失, 腹股沟及腋窝淋巴结肿大消失, 但腹痛次数逐渐频繁, 无腹泻及便秘, 1 年前发现 Rosai-Dorfman 病结外型器官受累伴恶变, 病情持续发展较入院时加重, 转入肿瘤科治疗。余 3 例患者出院后复诊恢复良好, 各项实验室检查正常, 彩超检查颈部淋巴结及电子鼻咽喉镜均未见复发, 目前继续随访中。

Rosai-Dorfman 病以组织细胞增生伴浆细胞浸润吞噬淋巴细胞为其主要特征, 该病确切病因目前尚未明确, 多数观点认为不明诱因引起的免疫功能紊乱或特殊感染可能是导致 Rosai-Dorfman 病的病因^[2], ARAKAKI 等^[3]在 1 例右肾单发 Rosai-Dorfman 病患儿体内检测出人类疱疹病毒 6(HHV-6), 提出 Rosai-Dorfman 病可能与感染 HHV-6 或与免疫调节障碍有关。近年来多项报道发现 Rosai-Dorfman 病伴发 HIV 感染患者病变均发生于皮肤, 而淋巴结及脏器均未受累, 考虑 HIV 感染与皮肤 Rosai-Dorfman 病发病关系密切^[4]。DI 等^[5]研究发现人类巨细胞病毒和 EB 病毒在 Rosai-Dorfman 病发病过程中发挥作用。

Rosai-Dorfman 病可发生于任何年龄, 国外报道好发于非洲、欧美等地的儿童及青少年, 而国内多见于中老年人^[6]。患者大多表现为无痛性淋巴结肿大, 有时可出现发热、血沉加快、高 γ 球蛋白血症、低清蛋白血症及白细胞增多等表现^[7], 分为结内型、结外型及混合型 3 类, 结内型为发生于淋巴结内, 结外型为发生于淋巴结以外的组织器官, 混合型为结内、结外均发生。结内型常好发于颈部淋巴结, 患者多表现为无痛性进行性多发淋巴结肿大, 结外型较少见且位置

多变^[8], 可发生于皮肤、上呼吸道、颅内、骨及软组织脏器^[9-10], 故结外 Rosai-Dorfman 病因其发病部位及病程的不同而出现的临床症状也差异迥然, 如眼睑肿胀、流泪、头痛、鼻塞、呼吸困难、咳嗽咳痰、哽噎及咽异物感等表现, 加之该病发病率低, 故临床诊断极易出现漏诊或误诊。目前文献报道头颈部 Rosai-Dorfman 病发病部位有鼻腔鼻窦^[11]、眼眶^[12], 发生于海绵窦及颅底的 Rosai-Dorfman 病可浸润性生长包绕颈内静脉或引起周围骨质增生硬化破坏^[13-14]、甲状腺及气管食管沟^[15]。本文报道的 4 例中 1 例为典型的颈部多发淋巴结内型受累, 1 例为全身多部位淋巴结及脏器混合型受累, 而另 2 例则为更为罕见的呼吸发声门周围单发结外型受累, 入院诊断分别为颈部淋巴结肿大伴感染、淋巴瘤、声门下肿物、声带前联合血管瘤, 均出现术前误诊, 待病理结果回报后方完成确诊 Rosai-Dorfman 病, 分别为 Rosai-Dorfman 病结内型(例 1)、Rosai-Dorfman 病多发混合型(例 2)、Rosai-Dorfman 病单发结外型(例 3、4), 误诊率 100%。

因缺乏特异性的临床特征, 头颈部影像学检查亦无特异性表现, 加之 Rosai-Dorfman 病少见, 基层医生对该病的认识不足, 临床上常常容易误诊。有报道 6 例鼻腔鼻窦 Rosai-Dorfman 病入院时 3 例曾误诊为鼻硬结病, 误诊率高达 50%^[16]。该病诊断主要依靠病理组织学检查及免疫组织化学, 其特征性表现为: (1) 淋巴结内充满大量增生组织细胞、浆细胞、淋巴细胞。(2) 结内型 Rosai-Dorfman 病多见组织细胞胞质内可见吞噬大量完整淋巴细胞, 成为“伸入运动”, 结外及混合型少见^[17]。(3) 结外及混合型多见周围炎症及纤维化, 而结内型则少见。(4) 免疫组织化学 S-100 阳性, CD68 可呈阳性, CD1a 阴性, 本组病例中 S-100 均为阳性, CD1a 阴性, 1 例患者出现 CD68 阴性。(5) 低倍镜下均可见大组织细胞与炎细胞浸润区形成明暗相间区域。(6) 窦内组织细胞无网球拍样的 Birbeck 小体。本研究 4 例患者的病理切片均与上述特点基本吻合。

头颈部 Rosai-Dorfman 病病理学方面需与以下疾病鉴别: (1) 鼻硬结症: 该病镜下虽然同样空泡细胞及浆细胞浸润, 但存在 Russell 小体, 而且 S-100 表达呈阴性, 泡沫样细胞(Mikulicz 细胞)可见鼻硬结杆菌, 同时鼻硬结病黏膜表面多发糜烂伴明显的假瘤样上皮增生^[18]。(2) 朗格汉斯细胞组织细胞增生症: 该病与 Rosai-Dorfman 病二者可以共存, 镜下可见体积较小的朗格汉斯细胞组织细胞浸润, 甚至可聚集成肉芽肿, 胞质内无淋巴细胞“伸入现象”, 电镜下可见 Birbeck 颗粒小体, 免疫组织化学 CD1a 阳性具有特异性, 与 Rosai-Dorfman 病不符。(3) 真菌、结核或结节

病:结核或结节病镜下可见朗格汉斯巨细胞,可查到真菌或结核杆菌,S-100 阴性。(4)淋巴组织非特异性增生:淋巴组织非特异性增生也可见淋巴窦腔内大量巨噬细胞,但胞体小且无伸入运动,免疫组织化学 S-100 阴性。(5)浆细胞瘤:该病镜下可见弥漫的浆细胞,细胞核偏位,免疫组织化学 CD38 胞质强阳性。(6)头颈部非霍奇金淋巴瘤:最常见的头颈部非霍奇金淋巴瘤-结外鼻型 NK/T 细胞淋巴瘤和弥漫性大 B 细胞淋巴瘤镜下见炎性背景下出现异形大细胞,免疫组织化学 S-100 阴性。(7)纤维组织细胞病:该病以纤维母细胞和组织细胞增生为主,呈螺旋特异性结构,S-100 阴性,发病多位于肢体远端。(8)恶性黑色素瘤:瘤细胞位于淋巴窦内且异型性明显,无淋巴细胞伸入现象,免疫组织化学 S-100、HMB45 阳性。值得注意的是,当 Rosai-Dorfman 病淡染区内大组织细胞增生较少,在镜下呈单个散在于浆细胞、淋巴细胞之间并伴有较多中性粒细胞浸润时可形成脓肿,此时极易误判为炎性病变,本组病例中例 1 患者入院后手术切片发现脓肿结合患者伴包块疼痛及间歇性发热症状,曾高度怀疑感染,导致误诊。

Rosai-Dorfman 病病程较长,是一种病因不明的良性自限性疾病,暂无系统规范的治疗方法,肿大淋巴结可自行消退,一般不需特殊治疗,少数病例如出现病灶影响脏器功能、威胁生命的呼吸道堵塞、压迫中枢神经系统等可以采取手术、糖皮质激素、抗代谢药物、免疫调节剂及 α 干扰素等治疗^[19]。有学者指出多脏器多发 Rosai-Dorfman 病应进行放化疗,推荐烷基化长春新碱联合糖皮质激素化疗方案,有效率约 50%,同时放射剂量建议控制在 30~50 Gy,放射疗法有效率约 30%^[20]。NASSERI 等^[21]推荐甲氨蝶呤、硫唑嘌呤联合应用泼尼松、长春新碱进行化疗,部分患者可达到完全缓解。本病仅淋巴结内型或单一非重要器官结外型受累预后良好,但其预后仍与病变范围累及脏器有关,如侵及多个重要脏器或伴发相关免疫疾病时,则预后较差,ANTUÑA 等^[22]报道 1 例脊髓硬膜内 Rosai-Dorfman 病病变伴发脑干及桥小脑角多发病灶患儿,该患儿术后 5 个月由于多发病灶进展并发急性肾衰竭和多器官衰竭死亡。CHEN 等^[23]报道 1 例双侧胸膜、心肺多发 Rosai-Dorfman 累及纵隔和结肠受累,激素治疗无效,确诊后 25 个月因发心源性肝功能障碍和肾衰竭死亡,提示全身多系统累及的多发性 Rosai-Dorfman 病,尤其是重要脏器受累导致疾病进展加速,预后差。同时,免疫系统功能紊乱也是全身多系统累及的多发性 Rosai-Dorfman 病特点之一,发病迅猛,累计范围广且多样化,可引起严重并发症。本研究例 2 患者为多发混合型 Rosai-Dorf-

man 病,出院后 3 年复诊见头颈部及腹股沟及腋窝病灶基本消失,但腹痛次数逐渐频繁,PET-CT 检查发现右肺、左侧锁骨、纵隔、双肺门及肠系膜多发淋巴结肿大伴糖代谢增高,肝内多发结节状低密度影、胸骨体骨质密度增高且结构紊乱,糖代谢增高,病情较上次入院时逐渐加重,判断预后不良。而 2 例单发声门周围结外型患者出院后复诊恢复良好,原发症状消失,各项实验室检查正常,彩超检查颈部淋巴结及电子鼻咽喉镜均未见复发,1 例首诊为颈部淋巴结肿大患者诊断明确后未给予任何特殊治疗,随访至今颈部淋巴结自行消退。

综上,头颈部 Rosai-Dorfman 病因其发病部位及临床表现多样化,极易造成临床误诊或漏诊,因其属于良性假瘤样增生性病变,需与该部位其他炎症及肿瘤鉴别诊断,免疫组织化学细胞呈 S-100 和 CD68 阳性利于诊断,对于发生于上呼吸道的 Rosai-Dorfman 病,手术彻底切除是预防严重并发症发生的最有效手段,须长期密切随访。

参考文献

[1] SUMMERS M R,PETTERSSON G,MAALOUF J F,et al. Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy: extra-nodal Rosai-Dorfman disease presenting as a rare aetiology of a large intracardiac mass[J]. Eur Heart J,2017,38(18):1439-1440.

[2] COHEN-BARAK C,ROZENMAN D,SCHAFER J,et al. An unusual co-occurrence of langerhans cell histiocytosis and Rosai-Dorfman disease:report of a case and review of the literature[J]. Int J Dermatol,2014,53(5):558-563.

[3] ARAKAKI N,GALLO G,MAJLUF R,et al. Extranodal rosay-dorfman disease presenting as a solitary mass with human herpesvirus 6 detection in a pediatric patient[J]. Pediatr Dev Pathol,2012,15(4):324-328.

[4] ELBULUK N,EGBERS R,TAUBE J M,et al. Cutaneous Rosai-Dorfman disease in a patient with human immunodeficiency virus[J]. Dermatol Online J,2016,22(1):pii13030.

[5] DI DIO F,MARIOTTI I,COCCOLINI E,et al. Unusual presentation of Rosai-Dorfman disease in a 14-month-old Italian child;a case report and review of the literature [J]. BMC Pediatr,2016(16):62.

[6] AJISE O E,STAHL-HERZ J,GOOZNER B,et al. Extranodal Rosai-Dorfman disease arising in the right atrium;a case report with literature review[J]. Int J Surg Pathol,2011,19(5):637-642.

[7] OMAR H R,MATTAR M,SHAWKY W,et al. Rosai-Dorfman disease[J]. Intem Med J,2012,42(4):1445-5994.

[8] GRIAUZDE J,LIEBERMAN A P,MCKEAN E,et al.

- Radiology-pathology case report; isolated extranodal Rosai-Dorfman disease of the skull base[J]. Clin Imaging, 2013, 37(6): 1146-1148.
- [9] WANG C C, AL-HUSSAIN T O, SERRANO-OLMO J, et al. Rosai-Dorfman disease of the genito-urinary tract: analysis of six cases from the testis and kidney[J]. Histo-pathology, 2014, 65(6): 908-916.
- [10] PATEL M H, JAMBHEKAR K R, PANDEY T, et al. A rare case of extra nodal Rosai-Dorfman disease with isolated multifocal osseous manifestation[J]. Indian J Radiol Imaging, 2015, 25(3): 284-287.
- [11] BEN TURKIA H, BEN ROMDHANE M, AZZOUZ H, et al. Rosai-Dorfman disease: therapeutic issues in 2 cases [J]. Arch Pediatr, 2011, 18(11): 1205-1209.
- [12] 任明玉, 刘立民, 付琳, 等. 眼眶 Rosai-Dorfman 病一例 [J]. 中华眼科杂志, 2015, 51(4): 305-306.
- [13] TAUFIQ M, KHAIR A, BEGUM F, et al. Isolated intracranial Rosai-Dorfman disease[J]. Case Rep Neurol Med, 2016; 1972594.
- [14] TIAN Y J, WANG J M, GE J Z, et al. Intracranial Rosai-Dorfman disease mimicking multiple meningiomas in a child: a case report and review of the literature[J]. Childs Nerv Syst, 2015, 31(2): 317-323.
- [15] 黄海建, 陈小岩, 郑智勇. 多发性 Rosai-Dorfman 病七例临床病理分析[J]. 中华病理学杂志, 2014, 43(10): 690-694.
- [16] 朴颖实, 王成硕, 张罗. 鼻腔鼻窦 Rosai-Dorfman 病与鼻硬结病临床病理对比分析[J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2017, 24(5): 249-252.
- [17] RASTOGI V, SHARMA R, MISRA S R, et al. Emperipolesis: a review[J]. J Clin Diagn Res, 2014, 8(12): ZM01-02.
- [18] 陈琼荣, 杨菲, 王明伟, 等. Rosai-Dorfman 病误诊为鼻硬结症一例[J]. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2010, 45(4): 338-339.
- [19] PRADHANANGA R B, DANGOL K, SHRESTHA A, et al. Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy (rosai-dorfman disease): a case report and literature review[J]. Int Arch Otorhinolaryngol, 2014, 18(4): 406-408.
- [20] 陈燕坪, 蒋翔男, 卢建平, 等. 乳腺 Rosai-Dorfman 病 12 例临床病理特征分析[J]. 中华病理学杂志, 2016, 45(8): 556-560.
- [21] NASSERI E, BELISLE A, FUNARO D. Rosai-Dorfman disease treated with methotrexate and low-dose prednisone: case report and review of the literature[J]. J Cutan Med Surg, 2012, 16(4): 281-285.
- [22] ANTUÑA RAMOS A, ALVAREZ VEGA M A, ALLES J V, et al. Multiple involvement of the central nervous system in Rosai-Dorfman disease [J]. Pediatr Neurol, 2012, 46(1): 54-56.
- [23] CHEN J Q, TANG H, LI B, et al. Rosai-Dorfman disease of multiple organs, including the epicardium: an unusual case with poor prognosis[J]. Heart Lung, 2009, 40(2): 168-171.

(收稿日期: 2018-07-08 修回日期: 2018-10-01)

(上接第 531 页)

- [9] 赵姜楠, 郑蔚, 孙萌, 等. 住院脑卒中患者主要照顾者照顾负担与积极感受的相关性研究[J]. 中国实用神经疾病杂志, 2014, 17(23): 98-100.
- [10] LAI D W L. Filial piety, caregiving appraisal, and caregiving burden[J]. Res Aging, 2010, 32(2): 200-223.
- [11] HILGEMAN M M, ALLEN R S, DECOSTER J, et al. Positive aspects of caregiving as a moderator of treatment outcome over 12 months[J]. Psychol Aging, 2007, 22(2): 361-371.
- [12] 张弛. 居家生命晚期病人家属照顾者应对方式与主观幸福感的干预性研究[D]. 上海: 复旦大学, 2011.
- [13] FARAJZADEGAN Z, KHALILI N, MOKARIAN F. Coping skill improve quality of life in women with breast cancer and maladaptive coping style[J]. Psychooncology, 2015, 24(2): 212-213.
- [14] 邢占军. 测量幸福: 主观幸福感测量研究[M]. 北京: 人民出版社, 2005.
- [15] 邓本敏, 饶洪英, 汪波. 晚期住院癌症患者家庭主要照顾者压力负荷及影响因素研究[J]. 重庆医学, 2016, 45(5): 653-657.
- [16] 栾贝贝, 王维利, 朱宇, 等. 基于压力与应对理论的癌症照顾者干预性研究现状[J]. 实用医学杂志, 2016, 32(8): 1356-1358.
- [17] 曾龙武, 唐漫漫, 聂华林, 等. 照顾者的照顾负担、应对方式与焦虑抑郁情绪相关性分析[J]. 现代预防医学, 2015, 42(17): 3185-3187.
- [18] 王林林, 李红玉, 周诗雪. 社区失能老人主要照顾者积极感受及其影响因素[J]. 现代预防医学, 2017, 44(24): 4461-4464.
- [19] ANTONY L, GEORGE L S, JOSE T T. Stress, coping, and lived experiences among caregivers of cancer patients on palliative care: a mixed method research[J]. Indian J Palliat Care, 2018, 24(3): 313-319.

(收稿日期: 2018-07-12 修回日期: 2018-09-21)