

Др Горан Бјелогрић¹,
др Златко Вујичић²,
др Весна Стојановић Камберовић³,
др Горан Виденовић⁴

¹ Институт за ОРЛ и МФХ КЦС – Београд,

² Дом здравља „Звездара“ – Београд,

³ Медицински факултет Приштина,

⁴ Клиника за МФХ – Косовска Митровица

Плеоморфни аденом малих плувачних жлезда

Кључне речи:

плеоморфни аденом,
мале плувачне жлезде,
хирург

Сажетак

Увод. *Adenoma pleomorphe*, епителни бенигни тумор, чини око 67% свих бенигну тумора плувачних жлезда и око 3-5% свих тумора главе и врата. Недовољно јасне етиопатогенезе, иако најчешће локализован у паротидној жлезди (70-90%), у малим плувачним жлездама се може наћи у око 6,5%. Најчешће се јавља у петој деценији живота, скоро подједнако у оба пола, код деце изузетно ретко, а предилекционо место настанка је граница тврдог и меког непца.

Циљ рада. Едукативног карактера. **Метод.** За приказ болесника добијени су подаци анамнезом, томографијом и *ST*-ом *PNS*, интраоперативним налазом и *PH* верификацијом тумора.

Приказ случаја. У Институту за ОРЛ и МФХ КЦС у Београду, 1988. године, због клинички и радиолошки нађене туморске израслине на тврдом, меком непцу, и левом горњем вестибулуму усне шупљине од медијалне линије до првог премолара и биопсије тумора левог алвеоларног процесуса максиле (*PH: Adenoma pleomorphe*), учињена је хируршка операција-ресекција максиле десно, уз *PH* анализу (*Adenoma pleomorphe*). Јуна 2005. године у амбулантним условима исте установе узета је биопсија са алвеоларног гребена максиле десно (*PH: Mucopolymers*), а због тумора десног максиларног синуса, који се појавио 15 год. раније. Клинички преглед и *ST PNS* без и са и.в. контрастом, пре и након биопсије, преоперативно, јула 2005. године, указао је на експанзивну туморску мекоткивну масу, која је окупирали ресецирани леви максиларни синус, разорила преостале костне структуре. Кроз под леве орбите залазила је интраорбитално. Тумефакт је захватио и вестибулум носа, више десно, цео максиларни синус и етмоид десно, разорио је медијални зид максиларног синуса десно, ширећи се у десни доњи носни ходник и у носну дупљу, разарајући костни палатум десно. Орбита десно је била интактна. Јула 2005. године, учињена је хируршка екстирпација тумора премаксиле и супротална ресекција максиле десно (*PH: Adenoma pleomorphe*).

Закључак. *Adenoma pleomorphe*, малих плувачних жлезда, с обзиром на дугу еволуцију, спорорастући и асимптоматски ток, открива се тек када својим експанзивним растом деструише околне структуре и даје симптоме отежаног дисања, гутања, сметњи при говору и изазивајући деформитет лица. Изразито су склони рецидивирању и деструисању. Терапија избора је хируршка, максимално радикална операција тумора.

Тумори пљувачних жлезда чине 3-5% свих тумора главе и врата (*Frazell 1953*). Према хистолошкој грађи могу бити бенигни – у највећем проценту заступљени у саливарним жлездама, и малигни – знатно мање инциденте. Процентуална дистрибуција тумора опада скоро пропорционално величини захваћене жлезде, тако да што је жлезда мања и инциденција појављивања тумора је мања. Однос бенигну и малигну лезија у појединим пљувачним жлездама је различит; у највећој саливарној жлезди – паротидној је око 80% бенигну тумора према 20% малигну, у субмандибуларним је око 60% бенигну према 40% малигну, док је у сублингуалним 70% малигну лезија према 30% бенигну. Бенигни тумори пљувачних жлезда се чешће јављају у већим пљувачним жлездама, а како величина жлезде опада, тај однос се мења у корист пораста малигну тумора. Инциденција рецидивирања тумора је изразита, па једном рецидивирајућа промена увећава потенцијал новог рецидива. Малигна алтерација примарно бенигне лезије је од 2-10%, према неким ауторима и до 20%, а 1-12% тумора чине малигни тумори саливарних жлезда (*Sharkey 1977, Woods 1977, Пишчевић 1984*).

Највећа процентуална заступљеност бенигну лезија представљена је епителним лезијама (плеоморфни аденом, папиларни цистаденом, мономорфни аденом, онкоцитом, миоепителиом), неепителним (хемангиом); малигним туморима: епителног порекла (мукоепидермоидни карцином, аденоид цистични карцином, *Ca* у плеоморфном аденому, аденокарцином, планоцелуларни *Ca*), неепителни малигни (лимфоми и саркоми) и метастатски тумори.

Плеоморфни аденом се јавља међу свим туморима у саливарним жлездама у око 70% свих тумора, од тога у скоро 70-90% у паротидној жлезди, у око 8% у субмандибуларним, 0,5% у сублингуалним и у око 6,5% у малим пљувачним жлездама, од тога на тврдом непцу у 4%. Предилекционо место настајања тумора у малим пљувачним жлездама најчешће је граница тврдог и меког непца. Може се наћи у слузници носа и параназалних шупљина, пљувачним жлездама крајника, ларинкса, па и трахеје. Обично се појављује око 50. године живота, претежно код женског пола када је локализација у паротидној жлезди, а скоро иста полна заступљеност је код тумора малих пљувачних жлезда, док се у децем узрасту изузетно ретко јавља (*Gläser 1974*).

Класификација тумора саливарних жлезда, углавном према хистолошким карактеристикама, коју је још давне 1972. године предложио *Thackray A. C.* а Светска здравствена организација публиковала, још увек је и са клиничког аспекта најприхватљивија. Јавља се најчешће као солитаран тумор, а мултифокална појава је реткост, као и истовремена појава плеоморфних аденома у више саливарних жлезда. Разноврсност морфолошких карактеристика плеоморфног аденома, различито клиничко понашање током своје еволуције, велика склоност ка рецидивирању и малигној алтерацији, чине га посебаном

дијагностичко-терапијском категоријом. Након дугогодишње споре еволуције, обично асимптоматске, може нагло да нараста, инфилтришући околне структуре, кост и мишиће, понашајући се малигно. А појава болова услед прирастања тумора уз кожу, ширењем на лице и врат, палпаторно чврсте конзистенције, неравне површине, непокретан, болан израштај – побуђује сумњу на малигно понашање. Постоје примарни малигни тумори – карцином у плеоморфном аденому, и малигно измењен примарно третиран бенигни плеоморфни аденом.

Дијагноза се поставља на основу анамнезе, клиничког прегледа, синалографије, ултразвука регије којој припада захваћена саливарна жлезда, *CT* без или са и.в. контрастом, а биопсија се ради код строго индикованих случајева.

Диференцијално дијагностички долази у обзир: синалоаденитис, лимфаденитис, лимфаденопатија, бенигни, малигни или метастатски тумори захваћене регије.

Терапија избора је хируршка, ресекција, ектирпација тумора и захваћеног околног предела максимално радикално, уз *PH* верификацију. Теоретска разматрања о несензитивности на радиотерапију у пракси су се показала као исправна.

Циљ рада

Циљ рада је едукативног карактера, да се приказом болесника укаже на релативно атипичну локализацију епителног бенигног тумора пљувачних жлезда – плеоморфног аденома, који после дугогодишње релативно асимптоматске фазе добија на наглој експанзивности и разарању околних структура, тежике клиничке слике, максимално захтевне радикалне хируршке интервенције, рецидивирању и неизвесне даље прогнозе.

Метод

За приказ болесника подаци су добијени анамнезом, клиничким прегледом, томографијом и *CT PNS*, интраоперативним налазом и *PH* верификацијом преоперативне биопсије и интраоперативног *PH* налаза тумора 2005. год. као и на основу медицинске документације, историје болести од ранијег оперативног третмана 1988. год.

Приказ случаја

У Институту за ОРЛ и МФХ КЦС у Београду, 1988. године због клинички и радиолошки нађене туморске израстине на тврдом, меком непцу и левом горњем вестибулуму усне шупљине од медијалне линије до првог премолара и биопсије тумора левог алвеоларног процеса максиле (*PH: Adenoma pleomorpha*) – учињена је хируршка операција – ресекција максиле десно, уз *PH* анализу (*Adenoma pleomorpha*). Пацијент се након операције није редовно контролисао. Јуна 2005. године у амбулантним

условима исте установе узета је биопсија са алвеоларног гребена максиле десно (PH: *Mioepiteliom*), а због тумора десног максиларног синуса, који се појавио 15 год. раније, клиничким прегледом и *CT PNS* без и са и.в. контрастом, пре и након биопсије, преоперативно, јула 2005. године, нађена је експанзивна туморска мекоткивна маса, која је окупирала ресецирани леви максиларни синус и разорила његове преостале костне структуре. Кроз под

леве орбите туморска маса је залазила интраорбитално. Тумефакт је захватио и вестибулум носа, више десно, цео максиларни синус и етмоид десно, разорио је медијални зид максиларног синуса десно, ширећи се у десни доњи носни ходник и у носну дупљу, разарајући при том костни палатум десно. Орбита десно је била интактна. Јула 2005. године учињена је хируршка екстирпација тумора премаксиле и супротална ресекција максиле десно



Слика 1. *CT* параназалних шупљина



Слике 2, 3, 4. Интраоперативно

Дискусија

Плеоморфни аденом малих пљувачних жлезда чини око 6,5% свих бенигних лезија саливарних жлезда. Због дуге асимтоматске еволуције открива се релативно касно, тек када даје симптоме који су последица продирања и разарања околних структура, па је и хируршки третман отежан и при максималној радикалности потенцијал рецидивирања је велики, што је овим радом и приказано. Резултати и подаци су у корелацији са подацима из наше и иностране литературе.

Закључак

Adenoma pleomorphic малих пљувачних жлезда, с обзиром на дугу еволуцију, спорорастућу и асимтоматски ток, открива се тек када својим експанзивним растом деструише околне структуре и даје симптоме отежаног дисања, гутања, сметњи при говору и изазивајући деформитет лица. Изразито су склони рецидивирању. Терапија избора је хируршка, максимално радикална операција тумора.



(PH: *Adenoma pleomorphic*). Локални клинички налаз 6 месеци након интервенције је био у нормалним границама, без знакова рецидива.

Pleomorphic adenoma of minor salivary glands-case report

Key words:

pleomorphic adenoma,
minor salivary glands,
surgery.

Abstract

Introduction. Pleomorphic adenoma, a benign tumor of the epithelium, comprises about 67% of all benign salivary gland tumors and about 3-5% of all tumors of the head and neck. Although it is most frequently localized in the parotid gland (70-90%) this tumor can be found in the minor salivary glands in around 6.5% of the cases. It occurs most frequently among people in their fifties, almost equally among men and women, extremely rarely in children, and the preelective site of origin is on the border between the hard and soft palate.

Objective: educational.

Method. For the presentation of patient, data were obtained by anamnesis, tomography and CT of the PNS, intra-operative findings, and PH tumor verification.

Case report. In the ENT and MFS Institute in Belgrade in 1988, clinical and radiological finding of a tumorous growth on the hard and soft palate and upper vestibule of the oral cavity from the medial line to the first premolar and a biopsy of a tumor of the left alveolar maxillary process (PH: pleomorphic adenoma) indicated a surgical operation – resection, that was carried out on the right maxilla, with a PH analysis (pleomorphic adenoma). In June of 2005, because of a tumor of the right maxillary sinus which appeared 15 years earlier, a biopsy was taken from the alveolar ridge of the right maxilla (PH: Myoepithelioma). The clinical examination and preoperative CT PNS with and without administration of contrast, before and after the biopsy, performed in July 2005, pointed to an expansive tumorous soft tissue mass, which occupied the recessed left maxillary sinus and destroyed the remaining bone structure. It expanded intraorbitally through the floor of the left orbit. The tumefaction affected the nose vestibule, predominantly on the right, the whole maxillary sinus and the right ethmoidal sinus, destroyed the medial wall of the right maxillary sinus, expanded into the lower right nasal passage and into the nasal cavity, destroying the bone palate on the right. The right orbit was intact. In July of 2005 a surgical extirpation of the premaxilla and a subtotal resection of the right maxilla was carried out (PH: pleomorphic adenoma).

Conclusion. The pleomorphic adenoma of the minor salivary glands, regarding its long evolution, slowly growth, and asymmetric course, was discovered only when its expansive growth destroyed the surrounding structures and gave symptoms of difficulty in breathing, swallowing, difficulty in speaking, and causing a deformity of the face. These tumors are very inclined to recidivism and destruction. The therapy of choice is a surgical, maximally radical operation of the tumor.

Литература

1. Stennert E, Wittekindt C, Klusmann JP, Arnold G, Guntinas-Lichius O. *Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: A prospective histopathological and immunohistochemical study*. Laryngoscope 2004;114:158-163.
2. Guntinas-Lichius O. *Increased Botulinum toxin type A dosage is more effective in patients with Frey's syndrome*. Laryngoscope 2002;112:746-749.
3. Штајнер, А. *Тумори максиларнофацијалног подмучаја*. Дечје новине 140-162.
4. Guntinas-Lichius O, Sittel C. *Treatment of post-parotidectomy salivary fistula with botulinum toxin*. Ann Otol Rhinol Laryngol 2001; 110: 1162-1164.
5. Stennert E, Wittekindt C, Klusmann JP, Arnold G, Guntinas-Lichius O. *Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: A prospective histopathological and immunohistological study*. Laryngoscope 2004;114:158-163.
6. Klusmann JP, Guntinas-Lichius O, Heilig B, Wagner M, Michel O, Jungehülsing M. *Sjögren-Syndrom und beidseitiges MALT-Lymphom der Glandula parotis*. HNO 1999;47: 637-641.
7. Wittekindt C, Stennert E, Klusmann JP, Arnold G, Guntinas-Lichius O. *Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: A review of 134 revision-operations at the University hospital of Cologne*. 5th European Congress of Oto-Rhino-Laryngology Head and Neck Surgery September 11-16, 2004. Rhodes / Kos, Greece.
8. Guntinas-Lichius O, Kick C, Klusmann JP, Jungehülsing M. *Stennert Pleomorphic adenoma of the parotid gland: A 13-year experience of consequent Management by lateral or subtotal parotidectomy*. Eur Arch Otorhinolaryngol 2004;261:143-6.