

Guz mieszany ślinianki przyusznej penetrujący do jamy czaszki

Mixed tumor of the parotid gland spreading into the cranial cavity

Daniel Majczyk, Ewa Osuch-Wójcikiewicz, Małgorzata Czesak, Kazimierz Niemczyk

Katedra i Klinika Otolaryngologii Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego, I. Banacha 1a, 02-097 Warszawa

Article history: Received: 11.01.2017 Accepted: 08.03.2017 Published: 30.03.2017

STRESZCZENIE:

Gruczołek wielopostaciowy jest niezłośliwym nowotworem wywodzącym się z gruczołów ślinowych. Jest to najczęstszy nowotwór występujący w śliniankach. Pomimo że jest guzem łagodnym, powinien być traktowany jako klinicznie niepewny. Mniej więcej w połowie przypadków obserwuje się nieostre odgraniczenie pomiędzy tkanką guza a mięszem ślinianki. Nowotwór ten może dawać odległe przerzuty nawet wówczas, gdy nie uległ zezłośliwieniu. Złośliwą przemianę gruczołka obserwuje się w 3–5 % przypadków. Celem niniejszej pracy było przedstawienie przypadku 75-letniej pacjentki ze wznową guza mieszanego szerzącego się przez ciągłość do jamy czaszki.

SŁOWA KLUCZOWE:

plemnik pleomorficzny, łagodny guz mieszany, inwazja wewnątrzczaszkowa

ABSTRACT:

Pleomorphic adenoma is benign tumor of the salivary glands. It is the most common neoplasm occurring in salivary glands. Although it is a benign tumor, it should be treated as a clinically uncertain. In about half of the cases a blurred boundary between the tumor tissue and the parotid parenchyma can be observed. This tumor metastasize distant, even without malignant transformation. Malignant transformation of adenoma observed in 3-5% of cases. The aim of this study was to present the case of 75-year-old patient with recurrent mixed tumor spreading by continuity to the cranial cavity.

KEYWORDS:

pleomorphic adenoma, benign mixed tumor, intracranial invasion

Gruczołek wielopostaciowy jest niezłośliwym nowotworem wywodzącym się z gruczołów ślinowych. Stanowi około 65% wszystkich nowotworów ślinianek i 70–80% wszystkich niezłośliwych guzów gruczołów ślinowych [1, 2]. Guz ten w około 65% przypadków występuje w śliniance przyusznej, w 8% w śliniance podżuchowej, a jedynie w 6–7% może wywodzić się z małych gruczołów ślinowych jamy ustnej, jamy nosowej i zatok przynosowych [1].

Gruczołek wielopostaciowy występuje prawie zawsze jednostronnie, jako pojedynczy, niebolesny, twardy, przesuwalny, wolno rosnący guz w okolicy przedusznej. Guz ten występuje zwykle w średnim wieku, częściej u kobiet, rzadko u dzieci [3]. Umiejscowiony jest najczęściej w płacie powierzchownym ślinianki. Zmia-

ny wychodzące z płata głębokiego długo nie dają żadnych objawów. W obrazie mikroskopowym stwierdza się cewy utworzone z komórek sześciennych i walcowatych, obserwuje się także lite ogniska komórek nowotworowych oraz wyspy nabłonka wielowarstwowego płaskiego. Struktury te są otoczone podścieliskiem ze zmianami typu śluzaka lub ogniskami o utkaniu chrząstki, stąd nazwa: guz mieszany – gruczołek wielopostaciowy [4].

Podstawą diagnostyki są: badanie USG, w którym łatwo uwi-
docznić dobrze odgraniczony guz o niskiej echogeniczności,
jednorodnej echostrukturze i policyklicznym zarysie w postaci
tzw. pączków oraz biopsja aspiracyjna cienkoigłowa (BAC), któ-
rej specyficzność wynosi od 68,2% do 100% [5, 6, 7, 8, 9, 10, 11].

Metodą z wyboru jest leczenie chirurgiczne. W przypadku guza płożonego w płacie powierzchownym wykonuje się parotidektomię powierzchowną, gdy zmiana zajmuje płat głęboki – parotidektomię całkowitą.

Nowotwór ten klinicznie umiejscawiany jest pomiędzy zmianami złośliwymi a niezłośliwymi.

OPIS PRZYPADKU

Pacjentka, lat 75, przyjęta została do Kliniki Otolaryngologii WUM z guzem okolicy lewego kąta żuchwy w celu diagnostyki i leczenia operacyjnego. W badaniu stwierdzono egzofityczną zmianę o średnicy około 5 cm, zlokalizowaną na szyi do tyłu i poniżej lewego kąta żuchwy, wolno rosnącą od około 10 lat. Od roku chora odczuwała ból i uczucie rozpierania w miejscu guza, wcześniej był on niebolesny.

Na podstawie badania podmiotowego ustalono, że w 1980 roku chora miała wykonywaną parotidektomię powierzchowną z powodu gruczolaka wielopostaciowego ślinianki przyusznej lewej, a 18 lat później reparotidektomię całkowitą z powodu wznowy guza. Obie operacje były przeprowadzone w Klinice Otolaryngologii WUM. Po drugim zabiegu chora zrezygnowała z obserwacji klinicznej, nie stawiając się na wizyty kontrolne. Od 2001 roku u pacjentki występowało stopniowe upośledzenie słuchu w uchu lewym oraz zwężenie lewego przewodu słuchowego zewnętrznego. Z tego powodu pacjentka zgłosiła się do innego ośrodka klinicznego, w którym w związku z wyżej opisanymi objawami dwukrotnie – w 2001 i 2005 roku – wykonywano plastykę przewodu słuchowego zewnętrznego. W 2006 roku chora miała wykonaną operację odtworzenia ciągłości przewodu słuchowego zewnętrznego po stronie lewej. Mimo obecności guza na szyi oraz wywiadu w kierunku gruczolaka wielopostaciowego w przeszłości, nie zdecydowano się podczas żadnego z zabiegów otologicznych na pobranie wycinków do badania histopatologicznego. Ciągłość przewodu słuchowego zewnętrznego, mimo trzech operacji, nie została odtworzona.

W związku ze stałym, stopniowym wzrostem guza na szyi, i nasilającymi się dolegliwościami bólowymi, chora miała wykonaną tomografię komputerową (w trybie ambulatoryjnym w miejscu zamieszkania). W badaniu uwidoczniło miękkotkankowy naciek z osteolizą struktury kostnej piramidy kości skroniowej po stronie lewej ze zniszczeniem struktur ucha środkowego. Patologiczna masa wypełniała przewód słuchowy zewnętrzny lewy ze zniszczeniem struktury kostnej ścian przewodu słuchowego. Zmiana szerzyła się w kierunku wzrostka sutkowego, niszcząc go całkowicie, a także do tylnego dołu czaszki, powodując odcinkowe zniszczenie łuski kości

potylicznej i przyleganie nacieku do lewej półkuli mózdzku z pogrubiałą oponą. Opisano także guzowaty płat głęboki ślinianki przyusznej po stronie lewej wielkości ok. 18x18 mm.

Po uzyskaniu wyniku tomografii komputerowej pacjentkę skierowano do Kliniki Otolaryngologii WUM.

W klinice wykonano rezonans magnetyczny szyi (3 miesiące po TK), w którym potwierdzono obecność patologicznej zmiany zajmującej piramidę lewej kości skroniowej, przewód słuchowy wewnętrzny oraz ucho środkowe. Zmiana schodziła do poziomu otworu żyły szyjnej i kanału nerwu podjęzykowego. W tylnej jamie czaszki uwidoczniło naciekanie opony twardej oraz zatoki esowatej i wtórną jej zakrzepicę. Ku górze zmiana dochodziła do opony lewego płata skroniowego, bez wyraźnego jej pogrubienia. Na szyi po stronie lewej w przestrzeni ślinianki podżuchwowej uwidoczniło guzowatą zmianę o wymiarach 34x37x57 mm [ryc. 1, 2].

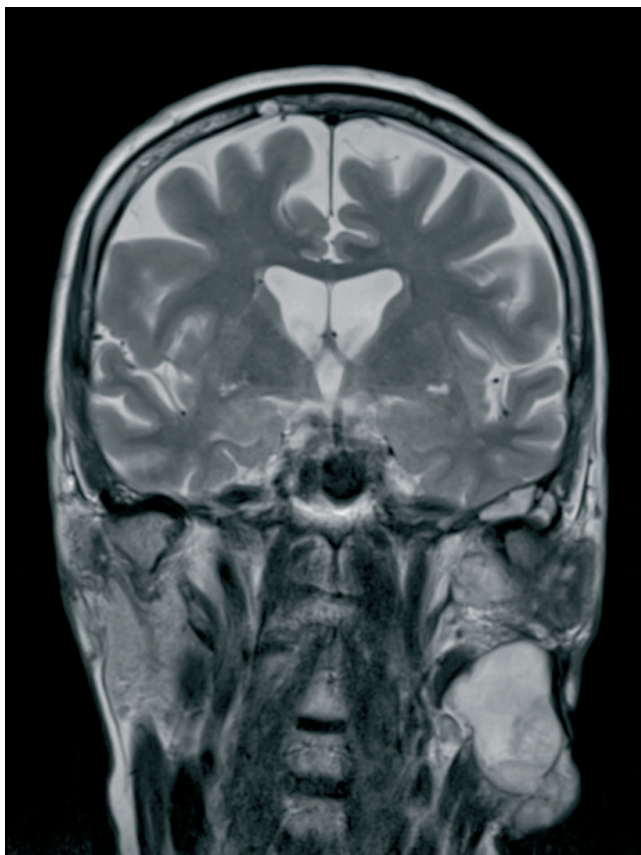
Chora została zakwalifikowana do leczenia operacyjnego. Usunięto guz z dostępu śliniankowo-szyjnego, wykonano petrosektomię subtotalną lewostronną, usunięto naciezoną oponę twardą wraz z rekonstrukcją za pomocą powięzi szerokiej uda oraz usunięto układ chłonny szyi poziom I, II, III po stronie lewej.

W czasie preparowania guza doszło do przerwania ciągłości nerwu twarzowego. Wykonano rekonstrukcję nerwu, zespalać go metodą koniec do końca. W okresie pooperacyjnym u chorej obserwowano głęboki niedowład nerwu twarzowego po stronie lewej (5 stopień w skali House'a Brackmanna), podjęto intensywną rehabilitację mięśni mimicznych twarzy.

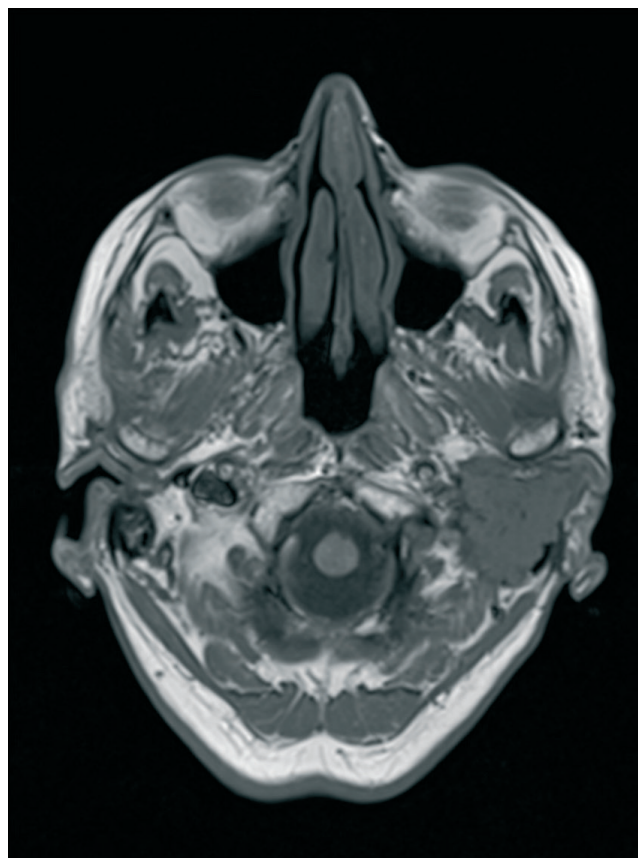
W drugiej dobie po operacji u pacjentki zaobserwowano wyciek płynu mózgowo-rdzeniowego z rany pooperacyjnej. Początkowo stosowano drenaż lędźwiowy, który był nieskuteczny, w związku z czym zdecydowano o operacyjnym zaopatrzeniu płynotoku.

Innym występującym powikłaniem, obserwowanym bezpośrednio po operacji, był niedowład dolnej grupy nerwów czaszkowych. W związku z zaburzeniami połykania chora była odżywiana przy użyciu zgłębnika dożołądkowego, mimo to w 6. dobie po operacji rozpoznano zachłystowe zapalenie płuc. Podczas antybiotykoterapii – związanej z zapaleniem płuc – u pacjentki obserwowano uporczywą biegunkę. Badaniami mikrobiologicznymi potwierdzono zakażenie przewodu pokarmowego bakterią *Clostridium difficile*.

Pooperacyjne badanie histopatologiczne potwierdziło rozpoznanie wznowy gruczolaka wielopostaciowego. Nie potwierdzono obecności przerzutów w usuniętych węzłach chłonnych szyi.



Ryc. 1. Obrazy wznowy gruczolaka wielopostaciowego naciekającego postawę czaszki w badaniu MR.



Ryc. 2. Obrazy wznowy gruczolaka wielopostaciowego naciekającego postawę czaszki w badaniu MR.

Chora w czasie pobytu w Klinice Otolaryngologii WUM wielokrotnie była konsultowana foniatrycznie i logopedycznie. W czasie hospitalizacji obserwowano wycofywanie się objawów niedowładu dolnej grupy nerwów czaszkowych. W 35. dobie włączono żywienie doustne.

Gojenie miejscowe rany przebiegało bez powikłań. Chora została wypisana w stanie ogólnym dobrym w 47. dobie po zabiegu operacyjnym. W chwili obecnej chora nie zgłasza się na kontrole.

DYSKUSJA.

Guzy gruczołów ślinowych stanowią 1–4% wszystkich występujących u ludzi nowotworów głowy i szyi [14, 15, 16]. Gruczolak wielopostaciowy jest najczęstszym nowotworem występującym w śliniankach. Pomimo że jest guzem łagodnym, powinien być traktowany jako klinicznie niepewny.

W około połowie przypadków obserwuje się nieostre odgraniczenie pomiędzy tkanką guza a mięszem ślinianki. Poza tym guz może

dawać tzw. ogniska satelitarne, czyli drobne ogniska nowotworu otoczone prawidłową tkanką gruczołu, niewiązane z główną masą zmiany. Guzki satelitarne są prawdopodobnie główną przyczyną częstych wznów nowotworu [4]. Nowotwór ten może dawać przerzuty odległe nawet wówczas, gdy nie uległ zezłośliwieniu. Przerzuty gruczolaka wielopostaciowego spotykane są bardzo rzadko, mogą występować jednak z płucach, kościach węzłach chłonnych [1, 12]. Przerzuty do czaszki są niezwykle rzadkością [1, 2, 13]. W przedstawionej pracy gruczolak wielopostaciowy nie był przerzutem, wrastał do jamy czaszki przez ciągłość.

Złośliwą przemianę gruczolaka obserwuje się w 3–5 % przypadków [4]. Według klasyfikacji Światowej Organizacji Zdrowia z 2005 roku wyróżnia się 3 rodzaje nowotworów związanych z gruczolakorakiem wielopostaciowym:

- rak w gruczolaku wielopostaciowym
- mięsakorak
- przerzutujący gruczolak wielopostaciowy [17].

Transformacji złośliwej gruczolaka sprzyja długi czas trwania choroby. Prawdopodobieństwo zezłośliwienia guzów

rosnących poniżej 5 lat wynosi 2%, a guzów rosnących powyżej 10 lat około 10% [14, 18, 19, 20]. Wznowę choroby w przypadku tego nowotworu traktuje się jako chorobę rezydualną [21]. Innymi czynnikami sprzyjającymi transformacji złośliwej są: nawrót guza, zaawansowany wiek (typowe występowanie w 6.–8. dekadzie życia) oraz rozmiar guza powyżej 4 cm [22].

Leczenie chirurgiczne w przypadku gruczolaka wielopostaciowego jest leczeniem z wyboru.

Rodzaj i rozległość zabiegu musi być dostosowana indywidualnie do stopnia zaawansowania choroby i jej lokalizacji. W przypadkach guzów w płacie powierzchownym wykony-

wana jest parotidektomia powierzchowna, jeśli guz znajduje się w płacie głębokim, lub zajmuje oba płaty, należy wykonać parotidektomię całkowitą.

Nie zaleca się wyluszczenia guza, ponieważ bardzo często po tym zabiegu dochodzi do „wznowy”, właściwie choroby rezydualnej, nawet po długim czasie od operacji [21, 23].

WNIOSKI

Pomimo łagodnego charakteru gruczolaka wielopostaciowego, chorzy wymagają długoletniej, wnikliwej obserwacji tak jak w przypadku nowotworów złośliwych.

Piśmiennictwo

1. Yang L., Tan L.2, Lau Q., Jayalath R.: Rare Primary Pleomorphic Adenoma in Posterior Fossa. *World Neurosurg.* 2016; 93: 484.e5–484.e8.
2. Sheedy S.P., Welker K.M., De Lone D.R., Gilbertson J.R.: CNS metastases of carcinoma ex pleomorphic adenoma of the parotid gland. *Am J. Neuroradiol.* 2006; 27: 1483–1485.
3. Strub G.S., Georgolios A., Graham R.S., Powers C.N., Coelho D.H.: Massive Transcranial Parotid Pleomorphic Adenoma: Recurrence after 30 Years. *J. Neurol. Surg. Rep.* 2012; 73: 1–5.
4. Wierzbicka M., Kopeć T.: Nowotwory gruczołów ślinowych. W: Nowotwory w otorynolaryngologii, pod red. Witolda Szyftera. Termedia, Poznań, 2015: 148–176.
5. Diaz K.P., Gerhard R., Domingues R.B. et al.: High diagnostic accuracy and reproducibility offline-needle aspiration cytology for diagnosing salivary gland tumors: cytohistologic correlation in 182 cases. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. Oral Radiol.* 2014; 118: 226–235.
6. Stramandinoli R.T., Sassi L.M., Pedruzzi P.A. et al.: Accuracy, sensitivity and specificity offline needle aspiration biopsy in salivary gland tumours: a retrospective study. *Med. Oral Patol. Oral Cir. Bucal.* 2010; 15: 32–37.
7. Zbären P., Schär C., Hotz M.A., Loosli H.: Value offline-needle aspiration cytology of parotid gland masses. *Laryngoscope.* 2001; 111: 1989–1992.
8. Das D.K., Petkar M.A., Al-Mane N.M., Sheikh Z.A., Mallik M.K., Anim J.T.: Role offline needle aspiration cytology in the diagnosis of swellings in the salivary gland regions: a study of 712 cases. *Med. Princ. Pract.* 2004; 13: 95–106.
9. Aversa S., Ondolo C., Bollito E., Fadda G., Conticello S.: Preoperative cytology in the management of parotid neoplasms. *Am. J. Otolaryngol.* 2006; 27: 96–100.
10. Zhang S., Bao R., Bagby J., Abreo F.: Fine needle aspiration of salivary glands: 5-year experience from a single academic center. *Acta Cytol.* 2009; 53: 375–382.
11. Moatamed N.A., Naini B.V., Fathizadeh P., Estrella J., Apple S.K.: A correlation study of diagnostic fine-needle aspiration with histologic diagnosis in cystic neck lesions. *Diagn. Cytopathol.* 2009; 37: 720–726.
12. Morrison P.D., Mc Mullin J.P.: A case of metastasizing benign pleomorphic adenoma of the parotid. *Clin. Oncol.* 1984; 10: 173–176.
13. Fujimura M., Sugawara T., Seki H., Otawara Y., Sakuma T., Nakano Y. et al.: Carcinomatous change in the cranial metastasis from a metastasizing mixed tumor of the salivary gland – case report. *Neurol. Med. Chir.* 1997; 37: 546–550.
14. Lau R., Fernández-Coello A., Vidal-Sarró N., Céspedes D., Camins A., Taberna M., Gabarrós A.: Brain metastasis of carcinoma ex pleomorphic adenoma of the parotid gland : case report and review of the literature. *Acta Neurochir.* 2017; 159: 459–463.
15. Santaliz-Ruiz L., Morales G., Santini H., Sánchez-Santiago M., Arroyo A.: Metastasizing pleomorphic adenoma: a fascinating enigma. *Case Reports in Medicine.* Vol. 2012, article ID 148103, 5 pages.
16. Venteicher A.S., Walcott B.P., Sheth S.A., Snuderl M., Patel Anoop P., Curry W.T., Nahed B.: Clinical features of brain metastasis from salivary gland tumors. *J. Clin. Neurosci.* 2013; 20 (11): 1533–1537.
17. Barnes L., Eveson J.W., Reichart P., Sidransky D.: World Health Organization classification of tumours. Pathology and genetics of head and neck tumours. IARC, Lyon 2005.
18. Kato H., Kanematsu M., Mizuta K., Ito Y., Hirose Y.: Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the parotid gland: radiologic-pathologic correlation with MR imaging including diffusion-weighted imaging. *Am. J. Neuroradiol.* 2008; 29: 865–867.
19. Livolsi V.A., Perzin K.H.: Malignant mixed tumors arising in salivary glands. Carcinomas arising in benign mixed tumors: a clinicopathologic study. *Cancer.* 1977; 39: 2209–2230.
20. Olsen K.D., Lewis J.E.: Carcinoma ex pleomorphic adenoma: a clinicopathologic review. *Head Neck.* 2001; 23 (9): 705–712.

21. Dąbrowska I.: Ogromna wznowa gruczolaka wielopostaciowego ślinianki przyusznej. *Postępy w Chirurgii Głowy i Szyi*. 2013; 2: 36–39.
22. Sheedy S.P., Welker K.M., DeLone D.R., Gilbertson J.R.: CNS metastases of carcinoma ex pleomorphic adenoma of the parotid gland. *Am. J. Neuradiol.* 2006; 27: 1483–1485.
23. Bradley P.J.: Metastasizing pleomorphic salivary adenoma should now be considered a low- grade malignancy with a lethal potential. *Curr. Opin. Otolaryngol. Head Neck Surg.* 2005; 13: 123–126.

Word count: 1400 Tables: — Figures: 2 References: 23

Access the article online: DOI: 10.5604/01.3001.0009.7983

Table of content: <http://otorhinolaryngologypl.com/resources/html/articlesList?issuelid=9790>

Corresponding author: Daniel Majszyk; Department of Otolaryngology, Medical University of Warsaw; 1a Banacha Street, 02-097 Warsaw, Poland; phone number: 22 599 25 21; e-mail: majszykdaniel@gmail.com

Copyright © 2017 Polish Society of Otorhinolaryngologists Head and Neck Surgeons. Published by Index Copernicus Sp. z o.o. All rights reserved

Competing interests: The authors declare that they have no competing interests.

Cite this article as: Majszyk D., Osuch-Wójcikiewicz E., Czesak M., Niemczyk K.: Mixed tumor of the parotid gland spreading into the cranial cavity; *Pol Otorhino Rev* 2017; 6(1): 21-25
