

Otrzymano: 19.07.2018
 Zaakceptowano: 31.11.2018
 Opublikowano: 31.12.2018

Opis dwóch przypadków współwystępowania jednostronnego gruczolaka wielopostaciowego i gruczolakotorbielaka brodawkowatego limfatycznego ślinianki przyusznej wraz z przeglądem piśmiennictwa

Two case reports of synchronous unilateral pleomorphic adenoma and cystadenolymphoma of the parotid gland with literature review

Daniela Heine, Johannes Zenk, Georgios Psychogios

Słowa kluczowe

synchroniczne jednostronne guzy ślinianki przyusznej, gruczolak wielopostaciowy, gruczolakotorbielak brodawkowaty limfatyczny, ultrasonografia w trybie B-mode, funkcja VTIQ

Keywords

synchronous unilateral parotid tumors, pleomorphic adenoma, cystadenolymphoma, B-mode ultrasound, virtual touch imaging quantification (VTIQ)

Department of Otorhinolaryngology, Head and Neck Surgery, Klinikum Augsburg, Augsburg, Niemcy

Adres do korespondencji: Dr. med. Daniela Heine, Department of Otorhinolaryngology, Head and Neck Surgery, Klinikum Augsburg, Sauerbruchstraße 6, 86179 Augsburg, Germany; e-mail: daniela.heine@klinikum-augsburg.de

DOI: 10.15557/JoU.2018.0055

Abstract

Background: Synchronous unilateral tumors in the parotid glands account for less than 5–10% of all salivary gland neoplasms. Mostly these are cystadenolymphomas, but tumors of different histological types can be found as well. In these cases it is often pleomorphic adenoma in combination with cystadenolymphoma. Ultrasound is the first choice imaging modality. **Case report:** We present two patients with two simultaneous tumors in a unilateral parotid gland. In each case, B-mode ultrasound showed two hypoechoic masses, one of which was predominantly cystic. The subsequent use of Virtual Touch Imaging Quantification (VTIQ) showed tumors of elastic tissue. After a parotidectomy, both cases were diagnosed with pleomorphic adenoma combined with cystadenolymphoma. **Conclusion:** The combination of B-mode ultrasound and VTIQ is an important diagnostic modality and may improve diagnostic accuracy to differentiate between benign and malignant lesions. Every clinician should be aware of the co-existence of different histological types of tumors in unilateral salivary glands.

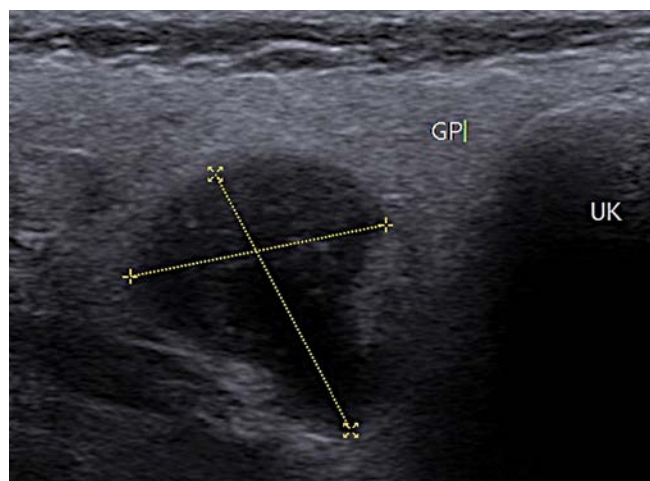
Nowotwory gruczołów ślinowych stanowią jedynie 3–6% wszystkich nowotworów głowy i szyi, przy czym większość z nich dotyczy ślinianek przyusznych⁽¹⁾. Najczęściej spotykanym nowotworem łagodnym gruczołu ślinowego jest gruczolak wielo-postaciowy, który rozwija się głównie w śliniance przyusznej. Ryzyko transformacji złośliwej szacuje się na około 6%^(2,3).

Gruczolakotorbielak brodawkowaty limfatyczny, znany również jako guz Warthina, stanowi 25–30% łagodnych nowo-tworów ślinianek przyusznych. Szacuje się, że w nie więcej niż 10% wszystkich przypadków zmiany te mają charakter jed-nostronny i wielocentryczny. Gruczolako-torbielak brodawkowaty limfatyczny często występu-

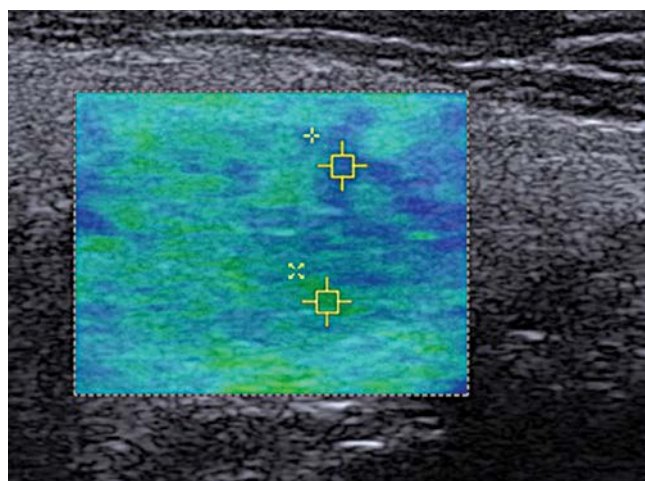
je u osób palących. Trans-formacje złośliwe są niezwykle rzadkie⁽⁴⁾.

Synchroniczne jednostronne guzy dużych gruczołów ślinowych stanowią 5–10% wszystkich nowotworów ślinianek⁽³⁾. Większość z nich to wieloogniskowe gruczolakotorbielaki brodawkowate limfatyczne⁽⁵⁾. Jednostronne guzy gruczołów ślinowych o różnych typach histologicznych to przeważnie gruczolaki wielopostaciowe współistniejące z gruczolako-torbielakami brodawkowatymi limfatycznymi⁽⁶⁾.

Badaniem pierwszego wyboru w diagnostyce obrazowej jest ultrasonografia⁽¹⁾. Funkcja VTIQ (Virtual Touch Imaging Qu-antification) to nowa technika wykorzystująca fale impulsowe



Ryc. 1. Badanie USG w trybie B-mode pierwszego guza znajdującego się w dolnym biegunie prawej ślinianki przyusznej (przypadek 1). GP – ślinianka przyuszna, UK – żuchwa



Ryc. 2. Obrazowanie z zastosowaniem funkcji VTIQ pierwszego guza znajdującego się w dolnym biegunie prawej ślinianki przyusznej (przypadek 1). Widoczny pomiar regionu zainteresowania oraz skala kolorowa. Niebieskie regiony odpowiadają tkance o większej elastyczności w porównaniu z regionami zaznaczonymi na czerwono

promieniowania akustycznego, umożliwiającą wykonanie ilościowych i jakościowych pomiarów fizycznej sztywności tkanek. Tkanka złośliwa charakteryzuje się większą sztywnością niż tkanka łagodna (Ryc. 1, 2).

W przypadku trudności w ocenie wymiarów guza za pomocą ultrasonografii lub u pacjentów, u których guz zlokalizowany jest w płacie głębokim ślinianki, duże znaczenie ma badanie MRI.

Celem pracy było zwiększenie świadomości na temat jednoczesnego występowania gruczolaka wielopostaciowego

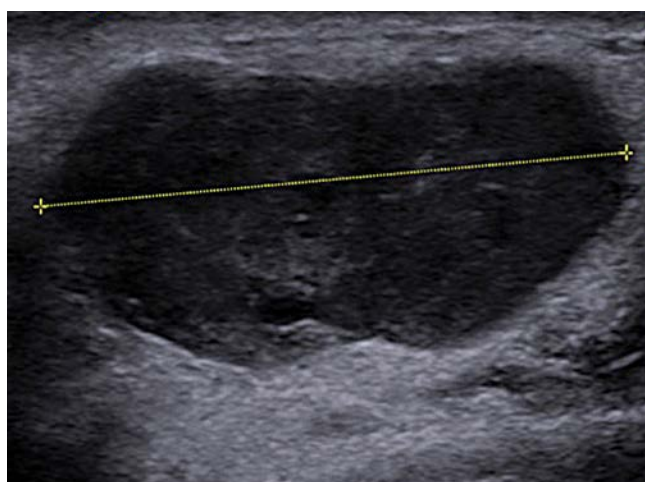
i gruczo-lakotorbielaka brodawkowatego limfatycznego oraz wykazanie, że ultrasonografia w trybie B-mode, a w szczególności sonoelastografia (funkcja VTIQ) to ważne metody diagnostyki różnicowej.

Opis przypadków

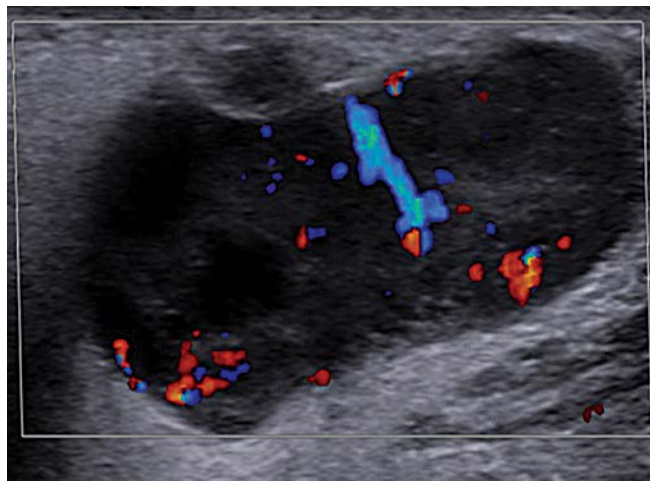
Pierwszy przypadek to 71-letnia kobieta paląca tytoń, która skonsultowała się z lekarzem w związku z zauważonym kilka lat wcześniej wolno rosnącym guzem umiejscowionym w prawej śliniance przyusznej. W badaniu palpacyjnym



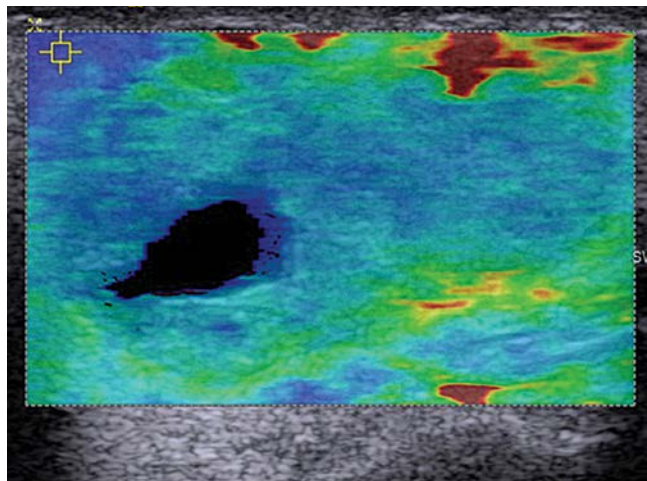
Ryc. 3. Badanie USG w trybie B-mode drugiego guza zawierającego pojedynczy obszar torbielowaty, zlokalizowanego w prawej śliniance przyusznej (przypadek 1). GP – ślinianka przyuszna, UK – żuchwa



Ryc. 4. Badanie USG w trybie B-mode drugiego guza zawierającego pojedynczy obszar torbielowaty, zlokalizowanego w prawej śliniance przyusznej (przypadek 1)



Ryc. 5. Badanie USG w trybie dupleksowym kodowane kolorem uwidaczniające drugi guz, zlokalizowany w prawej śliniance przyusznej (przypadek 1). Widoczne rozproszone unaczynienie bez charakterystycznego wzoru oraz obszar bezechowy wskazujący na obecność obszaru torbielowatego



Ryc. 6. Obrazowanie z zastosowaniem funkcji VTIQ – widoczny drugi guz zawierający pojedynczy obszar torbielowaty („czarna obszar”); skala kolorowa prawej ślinianki przyusznej (przypadek 1). Niebieskie regiony odpowiadają tkance o większej elastyczności w porównaniu z regionami zaznaczonymi na czerwono. Obszary czerwone mogą stanowić artefakty z uwagi na sąsiadującą kość. Jeden z pomiarów przedstawia prędkość fali ścinania

stwierdzono guz położony w okolicy przedusznej, w regionie prawej ślinianki przyusznej. Badanie fizykalne ujawniło obustronnie brak uszkodzenia nerwu twarzowego.

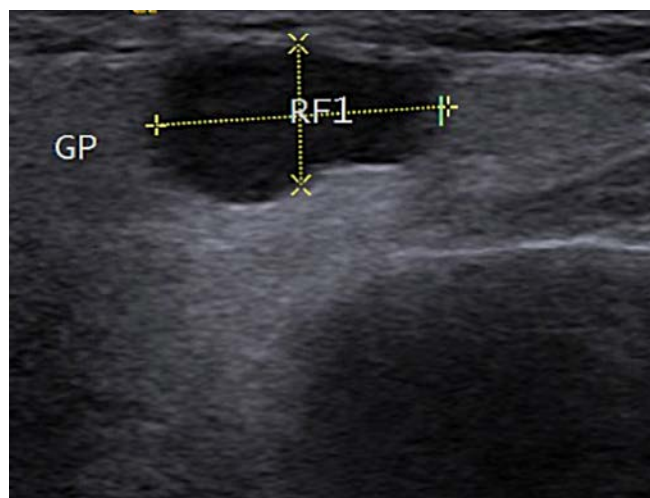
W badaniu ultrasonograficznym uwidocznił dobrze odgraniczony, hipoechogeniczny guz z obszarem bezechowym, zlokalizowany w dolnym biegunie ślinianki przyusznej, o wymiarach $13,8 \times 15,3 \times 21,0$ mm (Ryc. 3). W badaniu z funkcją VTIQ uwidocznił elastyczny guzek (skala koloru: niebieski do zielonego; Ryc. 2). W technologii tej wykorzystuje się impuls akustyczny w celu analizy przemieszczenia elementów tkanki. Na podstawie uzyskanych danych tworzy się mapę jakościową. Regiony zaznaczone kolorem niebieskim oznaczają tkankę o mniejszej sztywności niż regiony oznaczone kolorem czerwonym (Ryc. 1, 2). Druga zmiana była zlokalizowana nad mięśniem żwaczem i mierzyła $32,2 \times 15,2 \times 31,0$ mm. Był to również dobrze odgraniczony guz, jednak o strukturze zrazikowej. Zmiana charakteryzowała się obecnością bezechowego obszaru, wewnętrznych obszarów echogenicznych i dystalnego wzmocnienia akustycznego (Ryc. 4, 5). Unaczynienie zmiany miało charakter rozproszony (Ryc. 6). Obrazowanie z zastosowaniem funkcji VTIQ także uwidocznił tkankę o niższej sztywności, z obecnością „czarnej dziury” odpowiadającej obszarowi torbielowatemu (Ryc. 2). Z uwagi na różnice w wyglądzie tych dwóch zmian stwierdzonych w przedoperacyjnym badaniu USG wysunięto podejrzenie obecności dwóch odmiennych jednostek chorobowych. W związku z tym podjęto decyzję o przeprowadzeniu całkowitego usunięcia ślinianki przyusznej bez uprzedniej biopsji cienkoigłowej. Obie zmiany usunięto i przesłano do badania histopatologicznego. Na przeciętych powierzchniach stwierdzono wyraźnie widoczne różnice makroskopowe (Ryc. 7).

W badaniu histopatologicznym stwierdzono, że masa z obszarami wielotorbielowatymi to gruczolakotorbielak brodawkowaty limfatyczny, natomiast druga zmiana odpowiada gruczolakowi wielopostaciowemu.

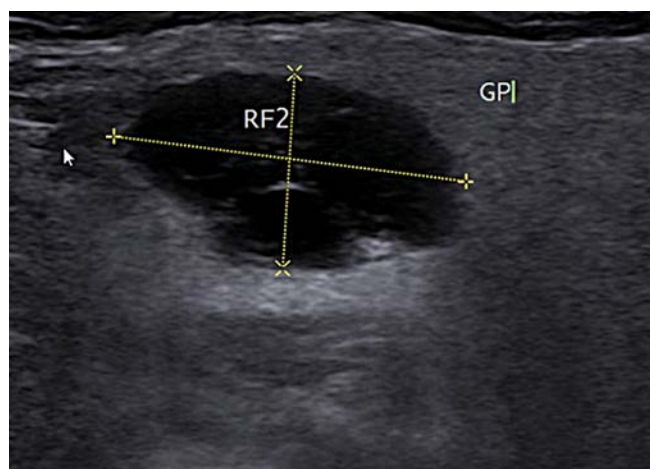
Drugi opis przypadku dotyczy 68-letniej kobiety z obecnością dwóch zmian w prawej śliniance przyusznej. W badaniu fizykalnym stwierdzono dwa wyczuwalne, niebolesne guzki. Badanie USG uwidoczniło dwie dobrze odgraniczone masy, jedną położoną w regionie przedusznym oraz drugą znajdującą się w dolnym biegunie prawej ślinianki przyusznej. Zlokalizowany przedusznie hipoechogeniczny, jednorodny



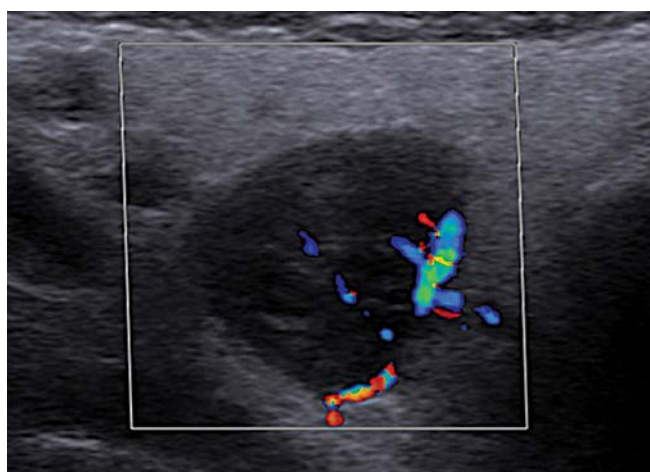
Ryc. 7. Masa guza po resekcji (przypadek 1) – oba guzy: po lewej beżowobrzowa zrazikowa powierzchnia cięcia z torbielowatą formacją (gruczolak wielopostaciowy, strzałka), po prawej brązowawożółta wielotorbielowata powierzchnia cięcia (gruczolakotorbielak brodawkowaty limfatyczny, strzałka)



Ryc. 8. Badanie USG w trybie B-mode pierwszego guza w regionie przedusznym prawej ślinianki przyusznej (przypadek 2, RF1 – guz pierwszy)



Ryc. 9. Badanie USG w trybie B-mode drugiego guza zlokalizowanego w prawej śliniance przyusznej (przypadek 2, RF2 – guz drugi)



Ryc. 10. Badanie USG w trybie dupleksowym kodowane kolorem uwiadczenia guza zlokalizowanego w prawej śliniance przyusznej, wykazujący unaczynienie obwodowe (przypadek 2)

guzek mierzył $11,5 \times 5,6 \times 8,2$ mm i wykazywał dystalne wzmocnienie akustyczne (Ryc. 8). Zmiana znajdująca się w dolnym biegunie gruczołu, również hipoechogeniczna i wykazująca dystalne wzmocnienie akustyczne, choć z obecnością wewnętrznych obszarów echogenicznych, mierzyła $18,9 \times 10,2 \times 11,8$ mm (Ryc. 9). Unaczynienie zmiany miało raczej charakter obwodowy (Ryc. 10). Badanie histopatologiczne potwierdziło gruczolaka wielopostaciowego i gruczolakotorbielaka brodawczakowatego limfatycznego.

Dyskusja

Nowotwory mnogie gruczołów ślinowych stanowią około 5–10% zmian w obrębie ślinianek przyusznych, przy czym guzy Warthina są najczęściej spotykane. Jak wspomniano wcześniej, synchroniczne guzy ślinianek przyusznych o odmiennych typach histologicznych stanowią poniżej 1% wszystkich nowotworów gruczołów ślinowych, a najczęstszym połączeniem jest współistnienie guza Warthina i gruczolaka wielopostaciowego⁽⁶⁾. Istnieje kilka doniesień o współistnieniu guzów łagodnych i złośliwych, jednak takie przypadki są niezwykle rzadkie. W przypadkach tych współwystępują zazwyczaj guz Warthina i rak śluzowo-naskórkowy⁽³⁾.

Ogromne znaczenie przypisuje się obrazowaniu przedoperacyjnemu. Możliwe jest osiągnięcie dokładności diagnostycznej na poziomie 90%. W diagnostyce różnicowej guzów metodą pierwszego wyboru jest ultrasonografia⁽¹⁾. W przypadku dużych guzów sprawiających trudności podczas oceny ultrasonograficznej ich wielkości stosuje się inne metody obrazowania, głównie rezonans magnetyczny (MRI). USG i MRI wydają się bardzo skuteczne w różnicowaniu między zmianami łagodnymi i złośliwymi⁽⁷⁾. W badaniu autorstwa Mansour i wsp.⁽⁸⁾ 202 pacjentów ze zmianami w obrębie ślinianek przyusznych poddano wielomodalnemu badaniu ultrasonograficznemu, obejmującemu USG w trybie B-mode o wysokiej rozdzielności obrazu, sonoelastografię w czasie rzeczywistym, ultrasonografię dupleksową kodowaną kolorem oraz USG ze wzmocnieniem kontrastowym.

Badacze stwierdzili, że połączenie ultrasonografii w trybie B-mode z badaniem klinicznym i wywiadem chorobowym daje możliwość rozpoznania zmian złośliwych przy czułości wynoszącej do 77% i specyficzności wynoszącej nawet 98%. Autorzy ci sugerują, że metoda ta jest pomocna w określaniu charakteru nowotworów, planowaniu niezbędnego leczenia chirurgicznego oraz zapobieganiu reoperacjom⁽⁵⁾.

Sonoelastografia stanowi użyteczną, uzupełniającą metodę pozwalającą na uzyskanie dodatkowych danych ilościowych i jakościowych dotyczących sztywności tkanki oraz oceny charakteru zmiany⁽⁹⁾. Funkcja VTIQ to nowa technologia dwuwymiarowego obrazowania opartego na fali poprzecznej, stanowiąca połączenie obrazowania ilościowego z oceną względnej sztywności tkanki. Na ogół tkanka złośliwa jest sztywna, natomiast tkanka łagodna – miękka. Gruczolak wielopostaciowy wydaje się wykazywać większą sztywność w porównaniu z gruczolakotorbielakiem brodawczakowatym limfatycznym, ale niższą w porównaniu z guzami złośliwymi⁽¹⁾.

Biopsja aspiracyjna cienkoigłowa pod kontrolą USG jest szeroko stosowana z uwagi na szybkość wykonania oraz możliwość dostarczenia dodatkowych informacji dotyczących charakteru zmiany, co pomaga lepiej zaplanować leczenie. Biopsja gruboigłowa natomiast jest kontrowersyjną metodą, z uwagi na możliwy rozsiew nowotworu oraz ryzyko powstania przetoki^(1,10).

Złotym standardem leczenia pozostaje całkowita resekcja guza z boczną lub całkowitą parotidektomią⁽⁶⁾. W zależności od charakteru guza może być konieczne leczenie wspomagające.

Wniosek

Zdecydowana większość guzów mnogich gruczołów ślinowych to gruczolakotorbielaki brodawkowate limfatyczne

Piśmiennictwo

1. Zengel P, Notter F, Reichel CA, Clevert DA: Does Virtual Touch IQ elastography help to improve the preoperative diagnosis of parotid tumors: A prospective trial. *Clin Hemorheol Microcirc* 2017; 67: 425–434.
2. Khan MN, Raza SS, Hussain Zaidi SA, Haq IU, Hussain AK, Nadeem MD *et al.*: Pleomorphic adenoma of minor salivary glands. *J Ayub Med Coll Abbottabad* 2016; 28: 620–622.
3. Curry JL, Petruzzelli GJ, McClatchey KD, Lingen MW: Synchronous benign and malignant salivary gland tumors in ipsilateral glands: A report of two cases and a review of literature. *Head Neck* 2002; 24: 301–306.
4. Mantsopoulos K, Goncalves M, Koch M, Iro H: Extracapsular dissection for warthin tumors despite the risk of ipsilateral metachronous occurrence. *Laryngoscope* 2018. DOI: 10.1002/lary.27166.
5. Franzen A, Koegel K. [Synchronous double tumors of the parotid gland]. *Laryngorhinootologie* 1996; 75: 437–440.
6. Ochal-Choińska A, Bruzgielewicz A, Osuch-Wójcikiewicz E. Synchronous multiple unilateral parotid gland tumors of benign and malignant histological types: Case report and literature review. *Braz J Otorhinolaryngol* 2016. DOI: 10.1016/j.bjorl.2016.03.002.
7. Goto TK, Yoshiura K, Nakayama E, Yuasa K, Tabata O, Nakano T *et al.*: The combined use of US and MR imaging for the diagnosis of masses in the parotid region. *Acta Radiol* 2001; 42: 88–95.
8. Mansour N, Bas M, Stock KF, Strassen U, Hofauer B, Knopf A: Multimodal ultrasonographic pathway of parotid gland lesions. *Ultraschall Med* 2017; 38: 166–173.
9. Klintworth N, Mantsopoulos K, Zenk J, Psychogios G, Iro H, Bozzato A: Sonoelastography of parotid gland tumours: Initial experience and identification of characteristic patterns. *Eur Radiol* 2012; 22: 947–956.
10. Shetty A, Geethamani V: Role of fine-needle aspiration cytology in the diagnosis of major salivary gland tumors: A study with histological and clinical correlation. *J Oral Maxillofac Pathol* 2016; 20: 224–229.

Konflikt interesów

Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść publikacji oraz rościć sobie do niej prawo.