

Frey's syndrome – can the troublesome syndrome be prevented?

Zespół Frey – lepiej zapobiegać niż leczyć?

Magdalena Antoszevska, Dorota M. Mehrholz, Wioletta Barańska-Rybak

Department of Dermatology, Venereology and Allergology, Medical University of Gdansk, Gdansk, Poland

Katedra i Klinika Dermatologii, Wenerologii i Alergologii, Gdański Uniwersytet Medyczny, Gdańsk, Polska

Dermatol Rev/Przeł Dermatol 2020, 107, 465–468

DOI: <https://doi.org/10.5114/dr.2020.101675>

CORRESPONDING AUTHOR/
ADRES DO KORESPONDENCJI:
lek. Magdalena Antoszevska
Katedra i Klinika Dermatologii,
Wenerologii i Alergologii
Gdański Uniwersytet Medyczny
ul. Smoluchowskiego 17
80-214 Gdańsk
e-mail: mmantoszevska@gmail.
com

ABSTRACT

Introduction. Frey's syndrome was first described by the Polish neurologist Łucja Frey in 1923. It occurs 2–12 months after injury to the parotid gland and it is clinically manifested by sweating, flushing, and a sense of warmth localized in the area of the auriculotemporal nerve, which occurs during eating meals.

Objective. This case report provides information about preventive methods to minimize the risk of developing Frey's syndrome after parotidectomy.

Case report. The case concerns a 28-year-old patient with Frey's syndrome after a partial superficial parotidectomy. Although treatment with botulinum toxin type A was recommended, the patient postponed the treatment due to pregnancy.

Conclusions. Different choices for the treatment have been proposed, although with no clear evidence of safety and efficacy. The risk of Frey's syndrome can be reduced with the appropriate surgical methods, which enable filling the parotid bed. Thoughtful planning before surgery may prevent troublesome treatment.

STRESZCZENIE

Wprowadzenie. Zespół Frey po raz pierwszy został opisany przez polską neurolog Łucję Frey w 1923 r. Pojawia się on od 2 do 12 miesięcy po urazie w okolicy ślinianki usznej i objawia się poceniem, zaczerwienieniem oraz uczuciem ciepła w okolicy nerwu uszno-skroniowego podczas jedzenia posiłków.

Cel pracy. Celem pracy było dostarczenie dodatkowych informacji na temat metod, które mogą zminimalizować ryzyko wystąpienia zespołu Frey po parotidektomii.

Opis przypadku. Kobieta 28-letnia z zespołem Frey po parotidektomii częściowej z powodu gruczolaka wielopostaciowego. Zalecono leczenie toksyną botulinową typu A w celu zniwelowania uciążliwych objawów. Z powodu ciąży leczenie zostało odroczone.

Wnioski. Proponowane są różne metody leczenia zespołu Frey, nadal jednak brakuje badań potwierdzających ich skuteczność i bezpieczeństwo. Ryzyko wystąpienia zespołu Frey można zmniejszyć poprzez zastosowanie odpowiednich metod chirurgicznych, które wypełnią przestrzeń po usuniętej śliniance. Precyzyjne planowanie parotidektomii może zapobiec uciążliwemu leczeniu w przyszłości.

Key words: Frey's syndrome, gustatory sweating, auriculotemporal nerve syndrome, auriculotemporal syndrome.

Słowa kluczowe: zespół Frey, pocenie smakowe, zespół nerwu uszno-skroniowego, zespół uszno-skroniowy.

INTRODUCTION

Frey's syndrome, also known as the auriculotemporal syndrome, was first described by the Polish female neurologist Łucja Frey in 1923 [1]. The syndrome usually occurs 2–12 months after surgery or injury to the parotid gland or temporomandibular joint and it affects about 5% of patients after parotidectomy [2, 3]. It is clinically manifested by sweating, flushing and a sense of warmth localized in the area of the auriculotemporal nerve. It occurs while eating or drinking anything that stimulates the parotid gland to produce saliva. Frey's syndrome is diagnosed depending on the anamnesis, symptoms, and assessment with Minor's iodine starch test [3]. The starch-iodine test consists of painting the affected region with iodine and applying dry starch to it. After a salivary stimulus is given, the starch turns brown in the presence of iodine and sweat [4].

OBJECTIVE

This case report serves to provide additional information about possible preventive methods to minimize the risk of developing symptomatic Frey's syndrome after parotidectomy and to avoid troublesome treatment.

CASE REPORT

We present a case of a 28-year-old female patient with Frey's syndrome. The patient was admitted to the Outpatient Clinic in 2019 complaining about excessive sweating of the left cheek. Symptoms usually occurred during eating meals, especially sour fruits. According to the anamnesis, the patient had a partial superficial parotidectomy of the left parotid gland due to a pleomorphic adenoma in 2015 (fig. 1). Two months after the surgery the patient noticed the first symptoms on the left cheek (sweating, flushing). The patient has been feeling discomfort and embarrassment.

To confirm Frey's syndrome Minor's starch iodine test was performed. It demonstrated localized hyperhidrosis on the periorbital area below the right zygomatic arch and flushing on the left cheek (fig. 2).

WPROWADZENIE

Zespół Frey, znany również jako zespół uszno-skroniowy, został opisany po raz pierwszy przez polską neurolog Łucję Frey w 1923 r. [1]. Schorzenie występuje zazwyczaj od 2 do 12 miesięcy po zabiegu chirurgicznym lub urazie w okolicy ślinianki przyusznej albo stawu skroniowo-żuchwowego. Dotyczy ok. 5% pacjentów po parotidektomii [2, 3]. Klinicznie objawia się poceniem, zaczerwienieniem i uczuciem ciepła w okolicy nerwu uszno-skroniowego. Pojawia się podczas spożywania pokarmów lub płynów, które pobudzają śliniankę przyuszną do produkcji śliny. Zespół Frey jest rozpoznawany na podstawie wywiadu, objawów oraz wyniku próby jodowo-skrobiowej Minora [3]. Próba ta polega na posmarowaniu okolicy, w której występuje nadmierna potliwość, jodyną i posypaniu skrobią. Po zadziałaniu bodźca powodującego wydzielanie śliny skrobia w reakcji na jodynę i pot zmienia barwę na brunatną [4].

CEL PRACY

Celem pracy jest dostarczenie dodatkowych informacji na temat metod, które umożliwiają minimalizację ryzyka wystąpienia objawowego zespołu Frey po parotidektomii i pozwalają zapobiec uciążliwemu leczeniu.

OPIS PRZYPADKU

Przedstawiamy przypadek 28-letniej kobiety z zespołem Frey. W 2019 r. pacjentka zgłosiła się do poradni ze względu na nadmierne pocenie się w okolicy lewego policzka. Objaw ten pojawiał się najczęściej podczas spożywania posiłków, zwłaszcza kwaśnych owoców. Na podstawie wywiadu ustalono, że w 2015 r. z powodu gruczolaka wielopostaciowego u pacjentki przeprowadzono operację częściowej powierzchownej parotidektomii w obrębie lewej ślinianki przyusznej (ryc. 1). Po 2 miesiącach od zabiegu kobieta zauważyła pierwsze objawy (pocenie, zaczerwienienie) lewego policzka. W związku z pojawieniem się tych objawów u pacjentki wystąpił dyskomfort i uczucie wstydu.

W celu potwierdzenia rozpoznania zespołu Frey wykonano próbę jodowo-skrobiową Minora. Stwierdzono miejscową nadmierną potliwość w okolicy okołoo-



Figure 1. Left cheek after the parotidectomy
Rycina 1. Lewy policzek po parotidektomii



Figure 2. The patient after the Minor's starch iodine test
Rycina 2. Pacjentka po wykonaniu próby jodowo-skrobiowej Minora

Treatment with botulinum toxin type A (BTXA) was recommended to the patient to relieve symptoms. Due to pregnancy, treatment was postponed.

DISCUSSION

Pathophysiology of Frey's syndrome remains unclear. Several etiologies of Frey's syndrome have been mentioned in the literature [2, 5, 6]. It is hypothesized that after the injury of the nerve, an improper regeneration of the parasympathetic cholinergic fibers that normally innervate the parotid gland occurs.

Different choices for the treatment of Frey's syndrome are proposed, but with no clear evidence of safety and efficacy [7]. Botulinum toxin type A has been widely used in the clinical treatment of Frey's syndrome. Although it is considered the best method for this condition, systematic repetition of the procedure to maintain the effect is required [3]. It provides significant benefits for patients, but the efficacy and safety of the different treatment methods are yet to be established [8]. Therefore the prevention of Frey's syndrome during surgery seems to be advisable. The main method used for prevention of improper regeneration of the nerves is the interposition of a graft between the skin flap and the parotid bed during surgery (the sternocleidomastoid muscle flap

dołowej poniżej prawego łuku jarzmowego, a także zaczerwienienie w obrębie lewego policzka (ryc. 2). Zalecono leczenie toksyną botulinową typu A (BTXA) w celu zniwelowania objawów. Z powodu ciąży pacjentki leczenie zostało jednak odroczone.

OMÓWIENIE

Patofizjologia zespołu Frey jest nieznana. W piśmiennictwie wskazuje się na różne czynniki etiologiczne, które mogą wywoływać to schorzenie [2, 5, 6]. Przypuszcza się, że w następstwie uszkodzenia nerwu dochodzi do nieprawidłowej regeneracji włókien nerwowych układu przywspółczulnego, które w prawidłowych warunkach unerwiają śliniankę przyuszną.

Proponowane są różne metody leczenia zespołu Frey, jednak nadal brakuje badań jednoznacznie potwierdzających ich skuteczność i bezpieczeństwo [7]. W leczeniu powszechnie wykorzystuje się BTXA. Uważa się, że jest to optymalna metoda leczenia tego schorzenia, jednak wymagane jest systematyczne powtarzanie zabiegów, aby utrzymać efekt [3]. Metoda daje pacjentom znaczące korzyści, ale niezbędne są dalsze badania nad skutecznością i bezpieczeństwem różnych opcji leczenia [8]. Z tego względu uzasadniona wydaje się profilaktyka zespołu Frey podczas operacji chirurgicznych. Główną metodą zapobiegania nieprawidłowej regeneracji nerwów jest wprowadzenie przeszczepu pomiędzy płat skórny a łożę po usunięciu ślinianki przyusznej podczas zabiegu chirurgicznego [z wykorzystaniem płata mięśnia mostkowo-obojczykowo-sutkowego (*sternocleidomastoid muscle flap* – SCMF), wolnych przeszczepów lub układu rozciągnowego mięśni powierzchownych] [9, 10].

(SCMF), free grafts or the superficial muscular aponeurotic system) [9, 10]. Different methods has been proposed, yet none has been considered the best [7]. Based on currently available evidence, the use of the SCMF seems to be the most beneficial [7, 11]. Randomized controlled trials are required to determine which graft interposition is the most effective for preventing Frey's syndrome [7].

CONCLUSIONS

Living tissue seems to be an effective barrier preventing the development of Frey's syndrome in post-parotidectomy patients. The auriculotemporal syndrome can be avoided with thoughtful planning before surgery [9], which may prevent troublesome treatment in the future.

CONFLICT OF INTEREST

The authors declare no conflict of interest.

W piśmiennictwie proponowane są różne metody, jednak nie ma zgodności, która z nich jest optymalna [7]. Na podstawie aktualnie dostępnych dowodów wydaje się, że najbardziej korzystną opcją jest SCMF [7, 11]. Niezbędne są kontrolowane badania z randomizacją, aby określić, która lokalizacja przeszczepu jest najlepsza pod względem skuteczności zapobiegania zespołowi Frey [7].

WNIOSKI

Skuteczną barierą zapobiegającą wystąpieniu zespołu Frey u pacjentów po parotidektomii jest obecność żywej tkanki. Zespołowi uszno-skroniowemu można zapobiegać, wykonując precyzyjne planowanie przed operacją chirurgiczną [9]. Pozwala to uniknąć konieczności podjęcia uciążliwego leczenia w przyszłości.

KONFLIKT INTERESÓW

Autorzy nie zgłaszają konfliktu interesów.

References

Piśmiennictwo

1. Bennett J.D.C.: The woman behind the syndrome: Frey's syndrome – the untold story. *J Hist Neurosci* 1994, 3, 139-144.
2. Trescot A.M., Rawner E.: Auriculotemporal nerve entrapment. In: *Peripheral Nerve Entrapments: Clinical Diagnosis and Management*. A.M. Trescot (ed.). Springer International Publishing, Switzerland, 2016, 105-115.
3. Guntinas-Lichius O.: Management of Frey's syndrome and hypersialorrhea with botulinum toxin. *Facial Plast Surg Clin North Am* 2003, 11, 503-513.
4. Motz K.M., Kim Y.J.: Auriculotemporal syndrome (Frey syndrome). *Otolaryngol Clin North Am* 2016, 49, 501-509.
5. Drummond P.D.: Mechanism of gustatory flushing in Frey's syndrome. *Clin Auton Res* 2002, 12, 144-146.
6. Kragstrup T.W., Christensen J., Fejerskov K., Wenzel A.: Frey syndrome-an underreported complication to closed treatment of mandibular condyle fracture? Case report and literature review. *J Oral Maxillofac Surg* 2011, 69, 2211-2216.
7. Ye L., Cao Y., Yang W., Wu F., Lin J., Li L., et al.: Graft interposition for preventing Frey's syndrome in patients undergoing parotidectomy. *Cochrane Database Syst Rev* 2019, 10, CD012323.
8. Xie S., Wang K., Xu T., Guo X.S., Shan X.F., Cai Z.G.: Efficacy and safety of botulinum toxin type A for treatment of Frey's syndrome: evidence from 22 published articles. *Cancer Med* 2015, 4, 1639-1650.
9. Bonanno P.C., Palaia D., Rosenberg M., Casson P.: Prophylaxis against Frey's syndrome in parotid surgery. *Ann Plast Surg* 2000, 44, 498-501.
10. Martos Díaz P., Bances del Castillo R., Mancha de la Plata M., Naval Gías L., Martínez Nieto C., Lee G.Y., et al.: Clinical results in the management of Frey's syndrome with injections of Botulinum toxin. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2008, 13, E248-E252.
11. Liu D.Y., Tian X.J., Li C., Sun S.S., Xiong Y.H., Zeng X.T.: The sternocleidomastoid muscle flap for the prevention of Frey syndrome and cosmetic deformity following parotidectomy: a systematic review and meta-analysis. *Oncol Lett* 2013, 5, 1335-1342.

Received: 20.05.2020

Accepted: 31.07.2020

Otrzymano: 20.05.2020 r.

Zaakceptowano: 31.07.2020 r.

How to cite this article

Antoszevska M., Mehrholz D.M., Barańska-Rybak W.: Frey's syndrome – can the troublesome syndrome be prevented? *Dermatol Rev/Przegl Dermatol* 2020, 107, 465-468. DOI: <https://doi.org/10.5114/dr.2020.101675>.