

Rzadki przypadek mnogiego synchronicznego nowotworu ślinianki przyusznej – gruczolaka wielopostaciowego i raka mukoepidermalnego

A rare case of diffuse synchronous parotid gland tumour – pleomorphic adenoma and mucoepidermoid cancer

Elżbieta Waśniewska-Okupniak¹, Anna Młodkowska¹, Katarzyna Iwanik², Maciej Pabiszczak¹, Małgorzata Wierzbicka¹

¹Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej Uniwersytetu Medycznego im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu
²Katedra Patomorfologii Klinicznej Uniwersytetu Medycznego im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

Streszczenie

Jednostronne synchroniczne występowanie nowotworów o odmiennej budowie histopatologicznej w obrębie ślinianki przyusznej jest niezwykle rzadkością i stanowi około 0,2–0,7% guzów tego gruczołu. Autorzy przedstawili kazuistyczny przypadek mnogiego nowotworu ślinianki przyusznej – wznowy miejscowej gruczolaka wielopostaciowego (po 8 latach po zabiegu chirurgicznym) i raka mukoepidermalnego. Celem pracy była próba odpowiedzi na pytanie, czy autorzy mieli do czynienia z dwoma niezależnymi ogniskami nowotworowymi, czy też doszło do transformacji nowotworu niezłośliwego w guz złośliwy.

Słowa kluczowe: nowotwory synchroniczne, ślinianka przyuszna, gruczolak wielopostaciowy, rak mukoepidermalny.

Abstract

Incidence of unilateral synchronous parotid gland tumours with different histological structure is extremely low (0.2-0.7%). The authors present a case of diffuse adenoma pleomorphic tumour (local recurrence 8 years after surgery) and mucoepidermoid cancer of the parotid gland. The aim of this study was to determine whether we are dealing with two independent foci of cancer or benign tumour was transformed into malignant tumour.

Key words: synchronous neoplasms, salivary parotid gland, pleomorphic adenoma, mucoepidermoid carcinoma.

(*Postępy w Chirurgii Głowy i Szyi* 2012; 2: 38–41)

Wstęp

Nowotwory gruczołów ślinowych są stosunkowo rzadkie i stanowią około 3% wszystkich guzów głowy i szyi [1]. Z reguły pojawiają się jako guzy pojedyncze; przypadki wieloogniskowego rozwoju nowotworu w obrębie jednej ślinianki lub równoczesne występowanie

nowotworów w kilku gruczołach ślinowych traktowane jest jako kazuistyka. Synchroniczne występowanie dwóch różnych nowotworów o odmiennej budowie histopatologicznej w obrębie jednego gruczołu ślinowego jest już niezwykle rzadkością [2–7].

W pracy przedstawiono przypadek chorego, u którego stwierdzono współwystępowanie dwóch guzów

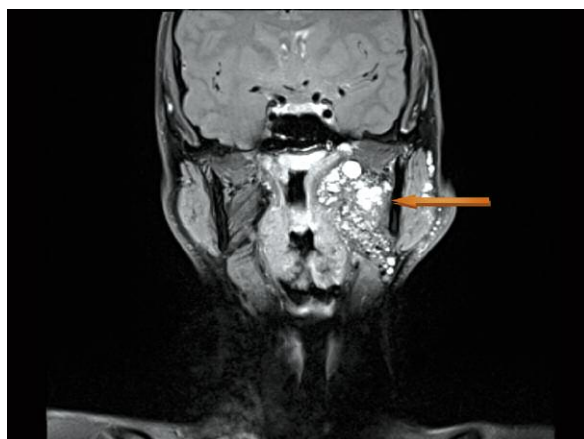


nowotworowych w obrębie jednej ślinianki przyusznej – raka mukoepidermalnego i wznowy miejscowej gruczolaka wielopostaciowego.

Opis przypadku

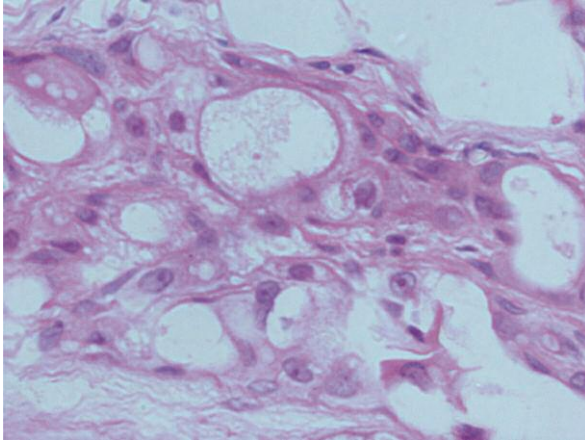
Chory, lat 25, został przyjęty 9 lipca 2001 roku do Kliniki Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej w Poznaniu z podejrzeniem guza przestrzeni przygardłowej po stronie lewej. Od około pół roku chory zaobserwował niebolesny, stopniowo powiększający się guz na szyi po stronie lewej, od kilku miesięcy występowało uczucie przeszkody i zawadzenia w gardle przy połykaniu. W badaniu przedmiotowym laryngologicznym stwierdzono twardy, nieprzesuwalny palpacyjnie guz w okolicy kąta żuchwy po lewej stronie o średnicy około 2 cm oraz uwypuklenie bocznej ściany gardła środkowego po lewej stronie. W badaniu ultrasonograficznym szyi wykazano obecność litej masy tkankowej o wymiarach 4,7 cm × 3,5 cm × 4,5 cm w obrębie płata głębokiego ślinianki przyusznej, penetrującej w kierunku przestrzeni przygardłowej po stronie lewej. Zabieg chirurgiczny z dojścia podwójnego wykonano 20 lipca 2001 roku. Z cięcia esowatego na szyi po stronie lewej, po odpreparowaniu tkanek miękkich i płata powierzchownego przyusznicy uwidoczniło się lity guz zlokalizowany w obrębie płata głębokiego ślinianki przyusznej. Pod kontrolą czujnika nerwu VII oddzielono gałązki nerwu twarzowego oplatające od zewnątrz masy guza, a następnie z dojścia przez jamę ustną, po rozcięciu nożem elektrycznym podniebienia miękkiego oraz łuku podniebленно-językowego po stronie lewej, wypreparowano i usunięto w całości masy guza o średnicy około 5 cm, leżące w przestrzeni przygardłowej. Przebieg pooperacyjny był niepowikłany, chory w 7. dobie w stanie ogólnym i miejscowym dobrym został wypisany do domu. Po 14 dniach uzyskano wynik badania histopatologicznego guza: gruczolak wielopostaciowy – *adenoma polymorphum* (ZAP Poznań 1611/01). Ze względu na brak oznak radykalności zabiegu w ocenie histopatologicznej chory pozostawał pod ścisłą opieką w Poradni Przyklinicznej Laryngologicznej i 2 razy w roku zgłaszał się na badania kontrolne. W październiku 2009 roku, tj. 8 lat od zabiegu chirurgicznego, w czasie rutynowej wizyty ambulatoryjnej wysunięto podejrzenie wznowy miejscowej guza. W badaniu przedmiotowym laryngologicznym stwierdzono niewielkie uwypuklenie bocznej ściany gardła środkowego i migdałka podniebiennego po stronie lewej. Za kątem żuchwy po stronie lewej, bezpośrednio na wysokości blizny pooperacyjnej wyczuwalny był palpacyjnie twardy, nieprzesuwalny guz o średnicy około 2 cm. W badaniu ultrasonograficznym szyi wykazano w obrębie płata głębokiego ślinianki przyusznej i przestrzeni przygardłowej (na głębokości około 4 cm od linii skóry) obecność hipoechogenicznego obszaru tkanko-

wego o policyklicznym i nieco zatartym obrysie, o średnicy 3,8 cm × 4,0 cm × 4,8 cm. Obraz sonograficzny sugerował utkanie gruczolaka wielopostaciowego. 22 listopada 2009 roku chory został przyjęty do Kliniki w celu dalszej diagnostyki i leczenia operacyjnego. W badaniu rezonansu magnetycznego (7913/09/MR) stwierdzono w obrębie lewej przestrzeni przygardłowej oraz płata powierzchownego i głębokiego ślinianki przyusznej rozległą masę o wielotorbielowatej strukturze, która po dożylnym podaniu środka kontrastowego wykazywała intensywne wzmocnienie kontrastowe. Obraz zmiany w badaniu rezonansu magnetycznego przemawiał za naczyniakiem limfatycznym (ryc. 1.). Zabieg chirurgiczny wykonano 16 grudnia 2009 roku: *Całkowite usunięcie ślinianki przyusznej i podżuchwowej po stronie lewej. Usunięcie guza przestrzeni przygardłowej i podstawy czaszki po stronie lewej. Resekcja nerwu twarzowego po stronie lewej z jednoczesną rekonstrukcją przy użyciu nerwu usznego wielkiego.* Z cięcia skórno-śluzniczego na szyi w bliźnie pooperacyjnej, po odpreparowaniu skóry i tkanek miękkich, uwidoczniło się i usunięto 2 drobne guzki leżące w obrębie płata powierzchownego przyusznicy. W toku dalszego preparowania stwierdzono rozległe masy guza naciekające miąższ ślinianki przyusznej, zarówno płat powierzchowny, jak i głęboki oraz wszystkie gałęzie nerwu twarzowego, śliniankę podżuchwową, przestrzeń przygardłową aż do podstawy czaszki, przestrzeń zagardłową oraz okolicę przedkręgosłupową na wysokości I i II kręgu szyjnego. Guz wypreparowano i usunięto w całości razem ze ślinianką przyuszną (łącznie z nerwem twarzowym) i ślinianką podżuchwową. Następnie wypreparowano nerw uszny wielki i wykonano anastomozę pomiędzy resztką pnia nerwu twarzowego a gałęzią skroniową i brzezną nerwu twarzowego. Bezpośrednio po zabiegu stwierdzono całkowite porażenie nerwu twarzowego (VI stopień w skali House'a-Brackmanna). Przebieg pooperacyjny był nie-

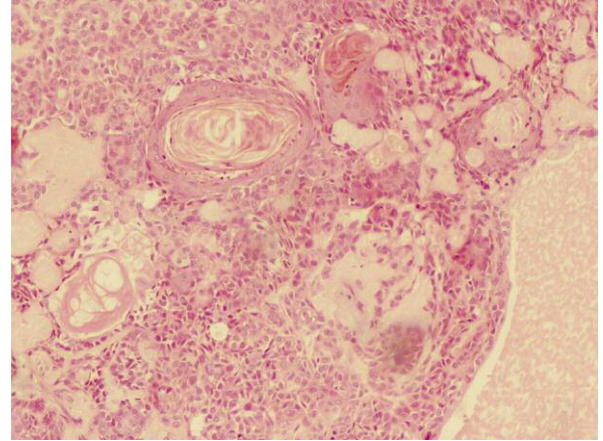


Ryc. 1. Rezonans magnetyczny twarzoczaszki – guz ślinianki przyusznej lewej (płat powierzchowny i głęboki) oraz przestrzeni przygardłowej po stronie lewej





Ryc. 2. Rak śluzowo-naskórkowy (*carcinoma mucoepidermale*) – komponent gruczołowy. Barwienie H + E. Powiększenie 200×



Ryc. 3. Rak śluzowo-naskórkowy (*carcinoma mucoepidermale*) – komponent płaskonabłonkowy. Barwienie H + E. Powiększenie 200×

powikłany i chory w 7. dobie po zabiegu został wypisany do domu. Po upływie 14 dni uzyskano wyniki badań histopatologicznych. W obrębie głównej masy guza rozpoznano utkanie raka śluzowo-naskórkowego – *carcinoma mucoepidermale G2* (według WHO *mucoepidermoid carcinoma*) naciekającego mięszs ślinianki przyusznej oraz wszystkie gałązki nerwu twarzowego (ZAP Poznań nr 17973) (ryc. 2. i 3.).

Ślinianka podżuchwowa była wolna od nacieku nowotworowego. W badaniu histopatologicznym dwóch guzków leżących na płacie powierzchniowym ślinianki przyusznej wykazano utkanie gruczolaka wielopostaciowego – *adenoma polymorphum* (ZAP Poznań nr 18006) (ryc. 4.).

Po konsultacji w Wielkopolskim Centrum Onkologii chory został poddany uzupełniającej radioterapii fotonami 6 MV i otrzymał pełną zaplanowaną dawkę 62 Gy/T na lożę po usuniętym guzie. Chory jest pod ścisłą kontrolą Poradni Przyklinicznej. W kontrolnych badaniach ultrasonograficznych szyi, pozytonowej

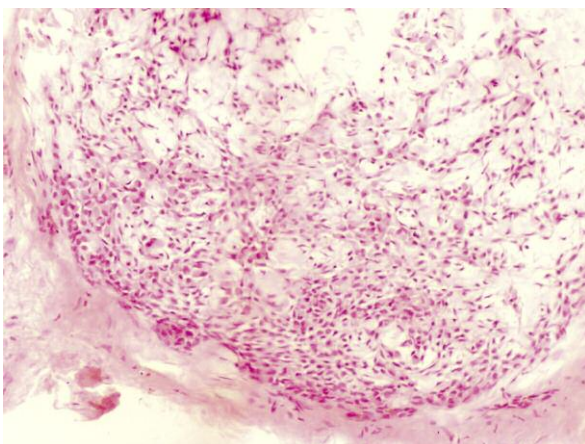
emisyjnej tomografii komputerowej oraz rezonansu magnetycznego przestrzeni przygardłowej w ciągu 3 lat od ostatniego zabiegu nie stwierdzono wykładników wznowy miejscowej procesu rozrostowego.

Mimo operacji rekonstrukcyjnej oraz intensywnej rehabilitacji i zabiegów fizykoterapeutycznych nie uzyskano istotnej poprawy funkcji nerwu twarzowego po stronie operowanej – IV/V stopień w skali House'a-Brackmanna. 4 sierpnia 2011 roku wykonano plastykę wargi dolnej po stronie lewej przy użyciu powięzi mięśnia udowego i uzyskano zadowalający efekt kosmetyczny.

Omówienie

Jednostronne, synchroniczne, o różnej budowie histopatologicznej guzy ślinianki przyusznej obserwowane są niezwykle rzadko i stanowią 0,2–0,7% guzów tego gruczołu [6]. Gaynor i Hershberg w 1976 roku pierwsi opisywali przypadek jednoczesnego wystąpienia dwóch guzów nowotworowych o różnym utkaniu histopatologicznym w obrębie jednej ślinianki przyusznej, który dotyczył współwystępowania gruczolaka wielopostaciowego i gruczolakochłoniaka [8]. Od tego czasu w piśmiennictwie pojawiły się pojedyncze doniesienia przedstawiające przypadki o podobnym charakterze. Tanaka i wsp. opisali kazuistyczny przypadek współwystępowania aż 3 ognisk nowotworowych w obrębie jednej ślinianki przyusznej – gruczolaka wielopostaciowego, gruczolakotorbielaka limfatycznego (guza Warthina) i raka przewodowego (*salivary duct carcinoma*) [9]. W piśmiennictwie polskim opisano dotychczas 9 przypadków dwóch jednostronnych, synchronicznych nowotworów o różnym utkaniu histopatologicznym w obrębie ślinianki przyusznej, z czego najliczniejszą grupę – 6 przypadków, udokumentowali Bień i wsp. [2, 5, 10, 11].

W dostępnych materiałach źródłowych autorzy znaleźli tylko jedno doniesienie o współwystępowaniu



Ryc. 4. Gruczolak wielopostaciowy (*adenoma polymorphum*). Barwienie H + E. Powiększenie 100×



gruczolaka wielopostaciowego i raka mukoepidermalnego w obrębie ślinianki przyusznej [12]. Nie napotkano natomiast żadnych doniesień o synergistycznym występowaniu raka mukoepidermalnego i wznowy gruczolaka wielopostaciowego, co obserwowano w przedstawionym przypadku.

Obecność w obrębie jednego gruczołu ślinowego nowotworu niezłośliwego i guza złośliwego nie pozwala jednoznacznie określić, czy mamy do czynienia z synergistycznym wystąpieniem dwóch niezależnych guzów, czy z transformacją formy niezłośliwej nowotworu w guz złośliwy. Dotyczy to przede wszystkim gruczolaka wielopostaciowego, którego transformacja złośliwa może prowadzić w około 2% przypadków do rozwoju w jego obrębie gruczolakoraka (*adenocarcinoma*) o wysokiej złośliwości albo raka z przewodów wyprowadzających gruczołów ślinowych (*salivary duct carcinoma*) [13, 14]. O rozpoznaniu synergistycznych guzów, a nie transformacji gruczolaka wielopostaciowego w nowotwór złośliwy decydują kryteria patomorfologiczne materiału operacyjnego – widoczna separacja dwóch utkań nowotworowych przez niezmienny, zdrowy mięsz ślinianki lub wyraźną torebkę łącznotkankową [2, 3, 6, 15]. W dostępnych materiałach źródłowych autorzy nie znaleźli doniesień o transformacji złośliwej gruczolaka wielopostaciowego w kierunku raka mukoepidermalnego. W przedstawionym przypadku główna masa guza miała utkanie raka mukoepidermalnego, natomiast 2 drobne ogniska gruczolaka wielopostaciowego zostały znalezione przypadkowo w trakcie preparowania i były oddzielone od zasadniczej masy guza niezmienną tkanką gruczołową ślinianki. Najprawdopodobniej były to ogniska satelitarne, pozostałe w mięszu ślinianki przyusznej po usunięciu przed 8 laty gruczolaka wielopostaciowego. Dane z wywiadu, decyzja o wykonaniu parotidektomii całkowitej i skrupulatne badanie histopatologiczne materiału operacyjnego umożliwiły wykrycie dwóch synchronicznych, niezależnych procesów rozrostowych w obrębie jednego gruczołu ślinowego.

Piśmiennictwo

1. Wierzbicka M, Kopeć T. Nowotwory gruczołów ślinowych. W: Nowotwory w otolaryngologii. W. Szyfter (red.). Termedia, Poznań 2012; 149-76.
2. Bień S, Kamiński B, Kopczyński J, Sygut J. Synchroniczne występowanie nowotworów o różnej histopatologii w obrębie ślinianki przyusznej. *Otolaryngol Pol* 2006; 60: 703-8.
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 review of literature. *Head Neck* 2002; 24: 301-6.
4. Franzen A, Koegel K. Synchronne Doppeltumoren der Glandula parotis. *Laryngorhinootol* 1996; 75: 437-40.
5. Gierek T, Majzel K, Markowski J, Kajor M. Rzadki przypadek pierwotnego mnogiego nowotworu złośliwego ślinianki przyusznej: włókniakomięsaka i raka płaskonabłonkowego. *Otolaryngol Pol* 1998; 52: 351-3.
6. Janecka IP, Pezin KH, Sternschein MJ. Rare synchronous parotid tumors of different histologic types. *Plast Reconstr Surg* 1983; 72: 798-802.
7. Lumerman H, Freedman P, Caracciolo P, Remigio PS. Synchronous malignant mucoepidermoid tumor of the parotid gland and Warthin's tumor an adjacent lymph node. *Oral Sur Oral Med Oral Pathol* 1975; 39: 953-8.
8. Gaynor EB, Hershberg R. Unilateral multiple tumours of the parotid gland. *J Laryngol Otol* 1976; 90: 295-8.
9. Tanaka S, Tabuchi K, Oikawa K, et al. Synchronous unilateral parotid gland neoplasms of tyree different histological types. *Auris Nasus Larynx* 2007; 34: 263-6.
10. Gierek T, Markowski J, Majzel K, Paluch. Rzadki przypadek pierwotnego mnogiego nowotworu ślinianki przyusznej: gruczolakotorbielaka limfatycznego i raka płaskonabłonkowego. *Otolaryngol Pol* 2000; 31 (supl. 54): 120-2.
11. Halań A, Rabczyński M, Prętnik L, Rabczyński J. Synchroniczny jednostronny gruczolak wielopostaciowy i guz Warthina ślinianki przyusznej. *Czas Stomat* 2002; 55: 286-9.
12. Pontilena N, Rankow RM. Coexisting benign mixed tumor and mucoepidermoid carcinoma of the parotid gland. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1979; 88: 327-30.
13. Olsen KD, Lewis JE. Carcinoma ex pleomorphic adenoma: a clinicopathological review. *Head Neck* 2001; 23: 705-12.
14. Sikorowa L, Meyza J. Guzy ślinianek. Warszawa, PZWL 1989.
15. Zeebregts CJ, Mastboom WJ, van Noort G, van Det RJ. Synchronous tumours of the unilateral parotid gland: rare or undetected? *J Cranio-maxillofac Surg* 2003; 31: 62-6.

Adres do korespondencji:

dr n. med. Elżbieta Wasniewska-Okupniak
Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej
Uniwersytet Medyczny im. Karola Marcinkowskiego
ul. Przybyszewskiego 49
60-355 Poznań
tel. +48 61 869 13 87
faks +48 61 869 16 90
e-mail: elzbieta.wasniewska@wp.pl

