

Rzadka lokalizacja torbieli skrzelopochodnej w miększu ślinianki przyusznej i nietypowy przebieg pooperacyjny – opis przypadku

Rare localization of a branchiogenic cyst in the parotid gland and unusual postoperative course – a case report

Anna Młodkowska, Elżbieta Waśniewska, Małgorzata Wierzbicka

Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej Uniwersytetu Medycznego im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

Streszczenie

Anomalie pierwszej szczeliny skrzelowej są rzadkie i stanowią ok. 8% wszystkich wad rozwojowych aparatu skrzelowego. Opisano przypadek torbieli skrzelopochodnej u 69-letniego mężczyzny, zlokalizowanej w obrębie płata powierzchownego ślinianki przyusznej. Przypadek przedstawiono nie tylko ze względu na rzadką lokalizację, lecz przede wszystkim z uwagi na nietypowy przebieg pooperacyjny. Pojawienie się ponownie guza ślinianki w krótkim okresie po radykalnym leczeniu chirurgicznym zasugerowało nawrót torbieli. Usunięty guz imitujący olbrzymi złóg okazał się dużym fragmentem zeszkliwiałej i uwapnionej tkanki, powstałym w wyniku nieprawidłowego procesu gojenia. Autorzy przedstawili ponadto mechanizm powstawania, lokalizację, metody rozpoznawania i leczenia anomalii pierwszej szczeliny skrzelowej.

Słowa kluczowe: ślinianka przyuszna, torbiel skrzelopochodna, pierwsza kieszonka skrzelowa.

Abstract

Anomalies of the first branchial cleft are rare and constitute around 8% of all malformations of the branchial apparatus. A case of a 69-year-old man with a branchial cleft cyst localized in the superficial lobe of the parotid gland is described. The case is presented not only because of the rare localization, but mainly because of an unusual postoperative course. In the short postoperative period after a radical surgical resection the tumour emerged again, that suggested recurrence of the cyst. The resected tumour imitating a giant deposit was actually a large fragment of hyaline tissue which accumulated during an anomalous process of healing. The authors also described mechanisms of formation, localizations, diagnostic methods and therapeutic options for anomalies of the first branchial cleft.

Key words: parotid gland, branchiogenic cyst, first branchial cleft.

(*Postępy w Chirurgii Głowy i Szyi* 2010; 2: 19–23)

Wstęp

Twarz i szyja stanowią jedną z najbardziej złożonych pod względem morfologicznym okolic ciała,

a tym samym miejsce szczególnie podatne na powstawanie różnych anomalii rozwojowych, które muszą być brane pod uwagę w diagnostyce różnicowej guzów tej okolicy [1]. Przedstawiono rzadki przypadek torbieli



skrzepochodnej w obrębie ślinianki przyusznej, imitujący klinicznie niezłośliwy guz przyusznicy, o bardzo nietypowym przebiegu gojenia po radykalnym leczeniu chirurgicznym.

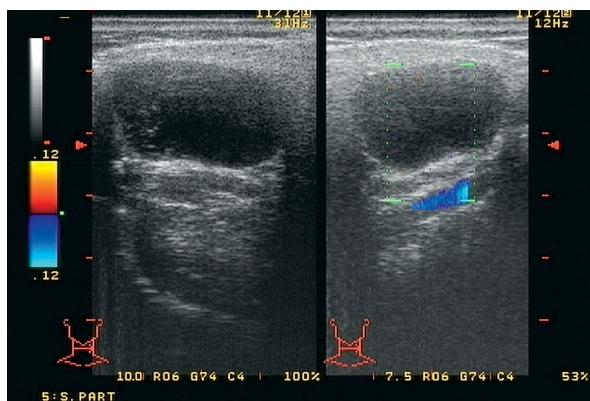
Opis przypadku

Mężczyzna 69-letni został przyjęty 19 lipca 2009 r. do Kliniki Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej w Poznaniu z podejrzeniem guza ślinianki przyusznej lewej. Przed kilkoma miesiącami pacjent zauważył mały, niebolesny guzek na szyi, w okolicy kąta żuchwy po stronie lewej, o stosunkowo niskiej dynamice wzrostu.

W dniu przyjęcia do Kliniki chory był w stanie ogólnym i miejscowym dobrym. W przedmiotowym badaniu laryngologicznym poza esowatym skrzywieniem przegrody nosa nie stwierdzono odchyżeń od stanu prawidłowego. Na bocznej powierzchni szyi, na wysokości kąta żuchwy po stronie lewej, palpacyjnie wyczuwalny był twardy, dość sprężysty guz o gładkiej powierzchni, o średnicy ok. 2–3 cm, nieco przesuwalny względem podłoża. Skóra nad guzem była niezmie-



Ryc. 1. Guz okolicy kąta żuchwy po stronie lewej

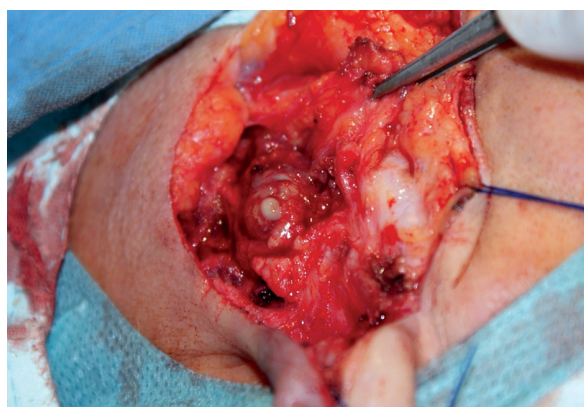


Ryc. 2. Badanie USG ślinianki przyusznej lewej – podejrzenie struktury torbielowej w obrębie jej miększu

niona (ryc. 1.). W badaniu ultrasonograficznym przezskórnym, wykonanym przy użyciu głowicy liniowej 7,5 MHz, stwierdzono w obrębie dolnego bieguna płata powierzchownego lewej ślinianki przyusznej obecność owalnego, hipoechogenicznego obszaru o powierzchni ok. 16 × 25 mm, o gładkim obrysie i wyraźnym odgraniczeniu od reszty miększu (torbka), bez cech przepływów naczyniowych w badaniu dopplerowskim. Obraz sonograficzny sugerował zmianę o charakterze przestrzeni płynowej, tj. torbiel ślinianki, bądź guza Warthina – gruczolakotorbielaka limfatycznego (ryc. 2.).

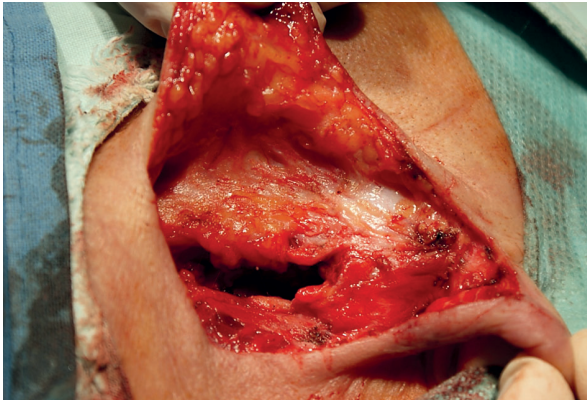
W dniu 21 lipca 2009 r. wykonano zabieg chirurgiczny – usunięcie guza (torbieli) ślinianki przyusznej lewej. Z cięcia skórniego w okolicy przedusznej i bocznej szyi po stronie lewej w kształcie litery S, po odpreparowaniu skóry i tkanek miękkich, uwidoczniono płat powierzchowny ślinianki przyusznej (ryc. 3.). Pod kontrolą czujnika nerwu twarzewego wypreparowano i usunięto w całości sprężysty, gładki guz o średnicy ok. 3 cm, który przesłano do badania histopatologicznego (ryc. 4. i 5.). Okres pooperacyjny przebiegł bez powikłań i w 4. dobie po zabiegu pacjenta w stanie ogólnym i miejscowym dobrym wypisano do domu. Po 2 tygodniach mężczyzna zgłosił się na wizytę kontrolną w poradni przyklinicznej z wynikiem badania histopatologicznego usuniętego guza (*cystis branchiogenes*; w nadesłanym materiale – gruczoł ślinowy z torbielą jednokomorową, w ścianie torbieli utkanie chłonne, poza tym gruczoł ślinowy bez istotnych zmian mikroskopowych). Okolica operowana była wygojona, palpacyjnie bez oporów patologicznych.

Po 2 miesiącach od zabiegu chirurgicznego mężczyzna ponownie zauważył stopniowo powiększający się guz w okolicy operowanej ślinianki przyusznej i po upływie kolejnych 2 miesięcy zgłosił się na wizytę do poradni przyklinicznej. Wykonane wówczas ambulatoryjnie badanie ultrasonograficzne przezskórne szyi wykazało obecność w obrębie miększu lewej przyusz-



Ryc. 3. Wypreparowany guz (torbiel) płata powierzchownego ślinianki przyusznej lewej





Ryc. 4. Łoża pooperacyjna po usuniętej torbieli



Ryc. 5. Preparat pooperacyjny – usunięta torbiel miększu ślinianki

nicy, na wysokości kąta żuchwy (poprzednia lokalizacja guza) obszaru o powierzchni 19×7 mm, o podwyższonej echogenności, zatartym odgraniczeniu od tkanek otaczających, z wyraźnym cieniem akustycznym sugerującym sonograficznie złóg.

W dniu 16 listopada 2009 r. chorego ponownie przyjęto do Kliniki i zakwalifikowano do leczenia operacyjnego. 19 listopada 2009 r. wykonano reoperację ślinianki przyusznej lewej. Z cięcia skórniego w bliźnie po poprzednim zabiegu operacyjnym uwidocznił się płat powierzchniowy ślinianki przyusznej lewej, z którego wypreparowano i usunięto w całości chrząstkowaty, twardy, nieregularny fragment tkankowy o wymiarach $25 \times 21 \times 14$ mm. W trakcie zabiegu usunięto także powiększony węzeł chłonny zlokalizowany w okolicy dolnego bieguna ślinianki (ryc. 6.). Całość materiału operacyjnego przesłano do badania histopatologicznego. Przebieg pooperacyjny był niepowikłany i w 6. dobie po zabiegu chorego wypisano do domu. Po ok. 2 tygodniach uzyskano wynik badania histopatologicznego – w obrazie mikroskopowym dominuje zeszkliwiała i zwapniała tkanka, obecne jest tylko jedno ognisko uciśniętych cew gruczołowych; węzeł chłonny ze zmianami reaktywnymi.

Chory pozostaje pod kontrolą poradni przyklinicznej, od prawie roku nie obserwowano klinicznych i sonograficznych wykładników nawrotu procesu chorobowego w obrębie operowanej ślinianki przyusznej.

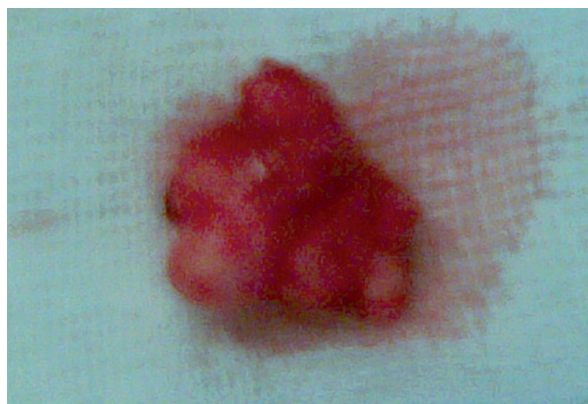
Omówienie

Etiologia powstawania torbieli szyi nie jest dokładnie znana. Najbardziej prawdopodobna jest teoria branchienna, tłumacząca ich wrodzone pochodzenie. Między 4. a 6. tygodniem życia zarodkowego mezenchyma, znajdująca się pomiędzy endodermą przedniego odcinka przewodu pokarmowego a nabłonkiem ektodermalnym pokrywającym okolice karku, tworzy 5 lub 6 par łuków skrzelowych. Pomiędzy nimi na

powierzchni powłok znajdują się szczeliny skrzelowe, a na powierzchni endodermy zlokalizowane są kieszonek skrzelowe. Powyższe struktury stanowią zaczątek części narządów szyi i twarzy [2]. Wady rozwojowe w postaci torbieli lub przetok bocznych szyi powstają w wyniku niepełnego zaniku płodowej zatoki szyjnej oraz kieszonek i szczelin skrzelowych. Rodzaj anomalii zależy głównie od tego, z której szczeliny skrzelowej wywodzi się dana torbiel. Najczęściej torbiel boczna szyi pochodzi z II szczeliny skrzelowej i zlokalizowana jest w obrębie trójkąta tętnicy szyjnej, tuż pod przednim brzegiem mięśnia mostkowo-obończykowo-sutkowatego. Sporadycznie może się rozwinąć także z I, III lub IV szczeliny skrzelowej.

Istnieją również doniesienia, iż torbiele szyi nie są schorzeniem wrodzonym, lecz nabytym i powstają w wyniku wgłobienia nabłonka do węzła chłonnego szyi. Przemawia za tym budowa tkanki limfatycznej stwierdzanej w ścianie torbieli – jest to obfita tkanka limfatyczna z ośrodkami rozmnażania [3–5]. Najwięcej jednak zwolenników ma teoria branchienna, czyli skrzelopochodna.

Anomalie I szczeliny skrzelowej, opisane po raz pierwszy w 1929 r. przez Hyndmana, występują sto-



Ryc. 6. Zeszkliwiała i uwapniona guz powstały w bliźnie po zabiegu, imitujący olbrzymi kamień ślinianki



sunkowo rzadko, stanowią ok. 1–6% wszystkich wad rozwojowych aparatu skrzelowego. Wśród nich najczęstsze są torbiele (68%), następnie zachyłki (16%) i przetoki (16%) [6, 7]. Ze względu na dużą zmienność form tej wady w 1972 r. wprowadzono dwustopniową klasyfikację anomalii I szczeliny skrzelowej. Pierwszy typ to ektodermalne zdwojenie pierwotne przewodu słuchowego zewnętrznego i rozprzestrzenianie się zmiany w okolicy przedmałżowinowej, powyżej pnia nerwu twarzowego aż pod łuk jarzmowy. Drugi typ jest zdwojeniem zarówno przewodu, jak i małżowiny usznej zawierającym oprócz elementów ektodermalnych również elementy mezodermalne. Zlokalizowany powyżej kąta żuchwy, krzyżuje nerw twarzowy i tworzy często liczne odgałęzienia w obrębie ślinianki przyusznej i 1/3 górnej części szyi, co nierzadko jest przyczyną trudności diagnostycznych i leczniczych [8].

Lokalizacja anomalii I szczeliny skrzelowej w obrębie ślinianki przyusznej jest bardzo różnorodna. Wada rozwojowa, najczęściej w postaci torbieli, może znajdować się zarówno wewnątrz, jak i na zewnątrz gruczołu ślinowego. Nieprzewidywalne jest również jej ułożenie względem gałęzi nerwu twarzowego. Jeśli ektoderma I łuku skrzelowego przetrwa blisko powierzchni, torbiel tworzy się bocznie od nerwu twarzowego. Z tego rodzaju lokalizacją mieliśmy do czynienia w opisywanym przypadku. Najczęściej bowiem (w 11 na 12 przypadków) torbiel przebiega w płacie powierzchniowym ślinianki, bocznie od nerwu twarzowego. Jeśli część przetrwałej ektodermy pozostanie w głębi I łuku, torbiel leży przyśrodkowo od pnia nerwu twarzowego, w obrębie płata głębokiego przyusznicy, co może stwarzać duże trudności operacyjne, wynikające z konieczności odszukania i preparowania wzdłuż pnia i gałęzi nerwu twarzowego. Taki przypadek torbieli skrzelopochodnej pochodzącej z I szczeliny skrzelowej, zlokalizowanej w obrębie płata głębokiego, opisali Drewienkiewicz i wsp. [9].

Niepowikłana torbiel I szczeliny skrzelowej klinicznie powoduje objawy wolno rosnącego guza ślinianki przyusznej. Ma postać niebolesnego, elastycznego guza, powoli się powiększającego, zlokalizowanego najczęściej w okolicy przedmałżowinowej, rzadziej w okolicy kąta żuchwy. Występuje przeważnie w młodym wieku, dwukrotnie częściej u kobiet. Jej cechami są szybkie powiększanie się zmiany, tkliwość pod wpływem palpacji, a następnie ból samoistny, świadczący o rozwinięciu się stanu zapalnego w obrębie torbieli, który jest przyczyną szybkiego zgłoszenia się chorego do lekarza. Podejrzenie torbieli I szczeliny skrzelowej w obrębie miększu ślinianki przyusznej wysuwa się więc już na podstawie wywiadu i badania przedmiotowego. Opisany przypadek odbiega nieco od reguły. Obecność u mężczyzny w średnim wieku gładkiego, niebolesnego guza w okolicy dolnego bieguna ślinianki przyusznej, jego powolny wzrost – sugerowały

raczej niezłośliwy rozrost nowotworowy ślinianki, najprawdopodobniej o utkaniu gruczolakotorbielaka limfatycznego (guz Warthina). Niezwykle przydatne w diagnostyce guzów szyi, w tym również dużych gruczolów ślinowych, jest badanie ultrasonograficzne szyi. Jest to badanie tanie, powtarzalne, nieobciążające chorego i dające natychmiastową informację na temat budowy i umiejscowienia zmiany. Pozwala rozpoznać charakterystyczny obraz struktury torbielowatej – ukazuje wnętrze torbieli o niskiej echogenności, jednorodnej echostrukturze, gładkim, regularnym zarysie, z wyraźnie widoczną torebką i grzbietowym wzmocnieniem fali. Doświadczony ultrasonografista może z dokładnością ok. 90% podać rozpoznanie zmiany torbielowatej [10]. Badanie metodą tomografii komputerowej czy rezonansu magnetycznego wykonuje się wówczas, gdy wyniki badań diagnostycznych są niejednoznaczne lub w przypadku torbieli nawrotowych, wymagających reoperacji. Decydujące znaczenie w rozpoznawaniu torbieli skrzelopochodnej ma jednak nadal badanie histopatologiczne usuniętego guza.

Podstawowym sposobem leczenia torbieli I szczeliny skrzelowej jest zabieg chirurgiczny mający na celu usunięcie całości zmiany wraz z torebką. Ze względu na lokalizację i nierzadko obecność licznych rozgałęzień w obrębie miększu ślinianki, konieczna jest identyfikacja i zachowanie gałęzi nerwu twarzowego, wymagająca w pierwszym etapie zabiegu wykonania parotidektomii powierzchniowej [11, 12].

Istotną przyczyną nawrotu torbieli jest zawsze pozostawienie fragmentu jej torebki. Dotyczy to zwłaszcza operacji usunięcia przetoki lub torbieli wywodzącej się z I szczeliny skrzelowej, które jak wspomniano powyżej, często wnikają w głąb miększu ślinianki przyusznej, niekiedy dochodząc do wyrostka jarzmowego lub przewodu słuchowego zewnętrznego. Również uszkodzenie śródoperacyjne ściany torbieli z wydostaniem się komórek jej wyściółki do pola operacyjnego może być istotnym czynnikiem zwiększającym ryzyko nawrotów [1, 13, 14].

W przedstawionym przypadku przebieg okresu pooperacyjnego był nietypowy. Ze względu na szczególne ryzyko nawrotów torbieli wywodzącej się z I szczeliny skrzelowej, pojawienie się w krótkim czasie po zabiegu operacyjnym niebolesnego guza w rzucie blizny pooperacyjnej w obrębie ślinianki przyusznej sugerowało klinicznie nawrót torbieli skrzelopochodnej. W badaniu ultrasonograficznym szyi wykluczono jednakże obecność przestrzeni płynowej i wysunięto podejrzenie złożu w łożu po usuniętej torbieli. Finalnie okazało się, że operowana wcześniej okolica uległa nietypowemu gojeniu. W ciągu kilku miesięcy tkanki uległy znacznemu zeszkliwieniu i uwapnieniu w taki sposób, że w bliźnie po poprzednim zabiegu wytworzył się pseudoguz imitujący olbrzymi zółg.



Powyższy przypadek przedstawiono ze względu na nietypowy przebieg procesu leczenia torbieli wywodzącej się z I szczeliny skrzelowej i brak doniesień w literaturze o podobnych przypadkach.

Piśmiennictwo

1. Drewienkiewicz E. Wrodzone przetoki i torbiele szyi w okolicy przedmażżowinowej. *Problemy laryngologiczne w codziennej praktyce* 2001; 26: 2-10.
2. Sisson G, Summers G. Branchiogenic cysts within the parotid gland. Report of a case. *Arch Otolaryngol* 1972; 96: 165-7.
3. Fujibayashi T, Itoh H. Lymphoepithelial (so-called branchial) cyst within the parotid gland. Report of a case and review of the literature. *Int J Oral Surg* 1981; 10: 283-92.
4. Ostrowski K. *Embriologia człowieka*. PZWL, Warszawa 1972.
5. Sobczyk G, Kiprian D. Rak w obrębie torbieli bocznej szyi – proces pierwotny czy przerzut? *Otolaryngol Pol* 2004; 58: 505-8.
6. Hyndman O, Light G. The branchial apparatus. *Arch Surg* 1929; 19: 410-52.
7. Olsen K, Maragos N, Weiland L. First branchial cleft anomalies. *Laryngoscope* 1980; 90: 423-6.
8. Wild G, Mischke D, Lobeck H, Kastenbauer E. The lateral cyst of the neck: congenital or acquired? *Acta Otolaryngol* 1987; 103: 546-50.
9. Drewienkiewicz E, Pogorzelski A, Bętkowski A. Torbiel pierwszej szczeliny skrzelowej w śliniance przyusznej. *Otolaryngol Pol* 1996; 50: 184-8.
10. Nowak K. Przydatność badania ultrasonograficznego w diagnostyce wrodzonych torbieli bocznych i środkowych szyi. *Otolaryngol Pol* 2000; 54: 751-61.
11. Belenky W, Medina J. First branchial cleft anomalies. *Laryngoscope* 1980; 90: 28-31.
12. Martine Del Pero M, Majumdar S, Bateman N, Bull P. Presentation of first branchial cleft anomalies: the Sheffield experience. *J Laryngol Otol* 2007; 121: 455-9.
13. Cerný L, Macák J. Branchiogenic parotid cysts. *Stomatol DDR* 1976; 26: 130-5.
14. Gerber D, Hugo N. Branchial cleft cyst in parotid gland. *Ann Plas Surg* 1982; 9: 413-4.
15. Work W. Newer concepts of first branchial cleft defects. *Laryngoscope* 1972; 82: 1581-93.

Adres do korespondencji:

lek. med. Anna Młodkowska
Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej
Uniwersytet Medyczny w Poznaniu
ul. Przybyszewskiego 49, 60-355 Poznań
tel. +48 61 869 13 87, faks +48 61 869 16 90
e-mail: ania.mlodkowska@wp.pl

