

SOL SUBMANDİBULER BÖLGEDEN GELİŞEN 17 YILLIK JUVENİL PLEOMORFİK ADENOMA

Baş Boyun Cerrahisi

Başvuru: 25.12.2017

Kabul: 24.01.2018

Yayın: 24.01.2018

Hasan Şafakoğulları¹, Mehmet Müderiszade², Remzi Tınazlı¹, Kadir Çağdaş Kazıkdaş¹, Mustafa Asım Şafak¹

¹ Yakın Doğu Üniversitesi Tıp Fakültesi
² Nalbantoğlu Eğitim ve Araştırma Hastanesi

Özet

SOL SUBMANDİBULER BÖLGEDEN GELİŞEN 17 YILLIK JUVENİL PLEOMORFİK ADENOMA

Pleomorfik adenomlar, baş boyun tümörlerinin %3-10 nu oluşturan benin tükürük bezi tümörleridir. Minör tükürük bezinden kaynaklanan, tümörler nadirdir ve juvenil baş boyun tükürük bezi tümörlerinin %5'den azını oluştururlar. İngilizce literatürde minör tükürük bezi kaynaklı pleomorfik adenomlar sıklıkla infratemporal fossa ve sert damakta, üst dudak veya yanakta rapor edilmiştir. Bu vaka vesilesiyle 24 yaşındaki erkek hastanın boyun bölgesinde beliren minor tükürük bezinden gelişen, 17 yıllık hikayesi olan dev boyutlardaki pleomorfik adenomu sunulmuş ve literatür eşliğinde tartışılmıştır. Bu vaka gösteriyor ki, boyun bölgesindeki uzun süreli dev kitleler, minor tükürük bezi adenomları olabilir.

Anahtar kelimeler: Juvenil, Pleomorfik, Adenom, Boyun

Abstract

JUVENILE PLEOMORPHIC ADENOMA OF SUBMANDIBULAR REGION DEVELOPED IN 17 YEARS

Pleomorphc adenomas are benign salivary tumors that compose 3-10% of the head and neck neoplasms. The salivary gland tumors originating from minor salivary gland are very rare and form less than 5% of juvenile head and neck salivary gland neoplasms. In the English literature, minor salivary gland pleomorphic adenomas mostly reported in infratemporal fossa, hard plate, upper lip, or cheek. A 17 year-standing, giant sized, pleomorphic adenoma appeared in neck which originated from minor salivary gland in a 24 year old male was presented and discussed in this report. This case points out that a long term ongoing giant mass in neck may be diagnosed as minor salivary gland pleomorphic adenoma.

Keywords: Juvenile, Pleomorphic, Adenoma, Neck

Giriş

Pleomorfik adenom, baş boyun neoplazmalarının %3-10'nunu oluşturan selim tükürük bezi tümörüdür [1]. Tükürük bezi tümörleri sıklıkla erişkin hastalığıdır. Juvenil baş boyun neoplazmalarının %5'den azı tükürük bezi kaynaklıdır. Tükürük bezi tümörleri içinde, minor tükürük bezinden orijin alanlar oldukça nadirdir [2]. Minör tükürük bezinden orijin alan tümörlerin lokalizasyonları çeşitlilik gösterir. Genellikle yanakta, Stenson kanalı boyunca [3] stilomandibuler tünelin içinde veya parafarengial bölgede görülebilmektedir [4]. İngilizce literatürde minor tükürük bezi orijinli en iyi bilinen ektopik pleomorfik adenomlar infra temporal bölgede rapor edilmektedir [5]. İntraoral olarak sırasıyla en sık sert damak, üst dudak ve yanakta görülmektedir [6,7]. Daha nadiren retromolar trigonda, ağız tabanında ve alveoler bölgede de tanımlanmıştır [8].

Pleomorfik adenom epitelyum ve mezenşimal hücre değişimini içerir. Bu iki grup hücre yapısından dolayı çok çeşitli morfolojik yapı gösterse de neoplazmik davranışları aynıdır [9]. Nadiren lipomatöz değişimler gösterebilmektedir [10].

Olgu Sunumu

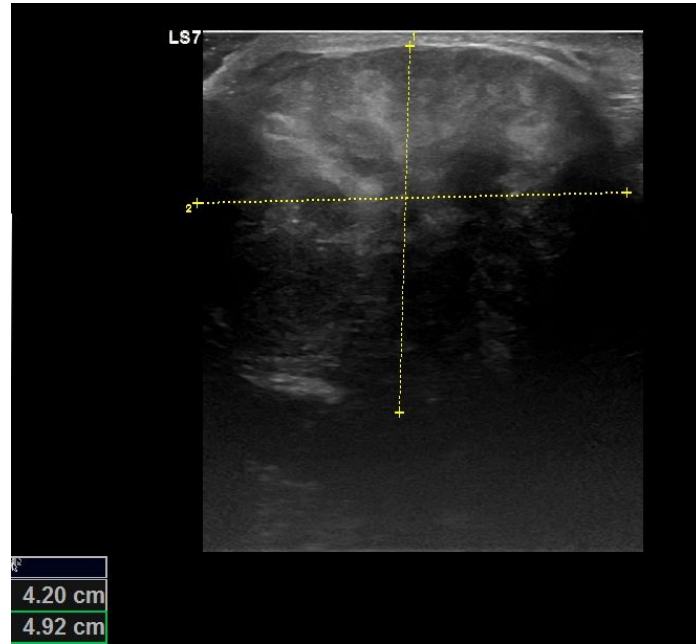
Olğumuz KKTC'de öğrenci olarak bulunan Afrika oijinli, Zimbabve vatandaşı 24 yaşında erkek hastadır. Öyküsünden sol taraf çene altında 7 yaşından beri giderek büyüyen, ağrısız bir kitle olduğu öğrenildi. Herhangi bir travma hikayesi olmayan 6x7 cm boyutlarındaki kitlenin sert, lobüle, mobil ve ağrısız olduğu saptandı (Şekil 1).



Şekil 1 : Sol submandibuler bölgede 6x7 cm boyutlarında sert ağrısız lobüle mobil kitle

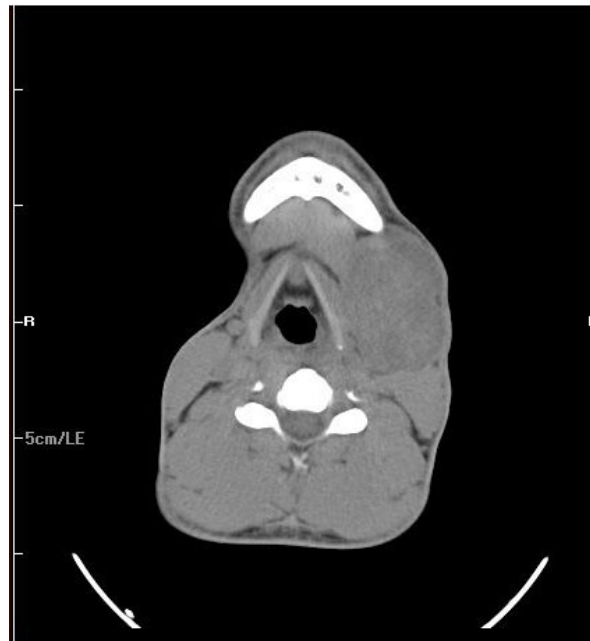
Diğere KBB ve baş-boyun fizik muayene bulguları normaldi. Kitle üzerindeki cilt de renk değışikliğı, yapışıklık veya ülserasyon yoktu.

Ultrasonografik tetkikte sol submandibuler bölgeyi dolduran yaklaşık 8x5 cm'lik alanda nekrotik alanları olan yer yer vaskülarizasyon gösteren heterojen görünümde multipıl sayıda konglemere lenf dokusu görünümünde kitle imajı mevcuttu (Şekil 2).



Şekil 2 : USG de sol submandibuler bölgeyi dolduran yer yer vaskülarizasyon gösteren heterojen görünümde lenf dokusu görünümünde kitle imajı

Bilgisayarlı tomografide posteriorda retromolar trigondan başlayan, submandibuler bezin anteromedialine uzanan, çevre kaslara invazyon göstermeyen, dil kökü ve sol tonsil komşuluğunda halo imajları oluşturan, lobüle konturlu, 7,5x4,5x6 cm boyutlarında kitle lezyonu tespit edildi (Şekil 3).

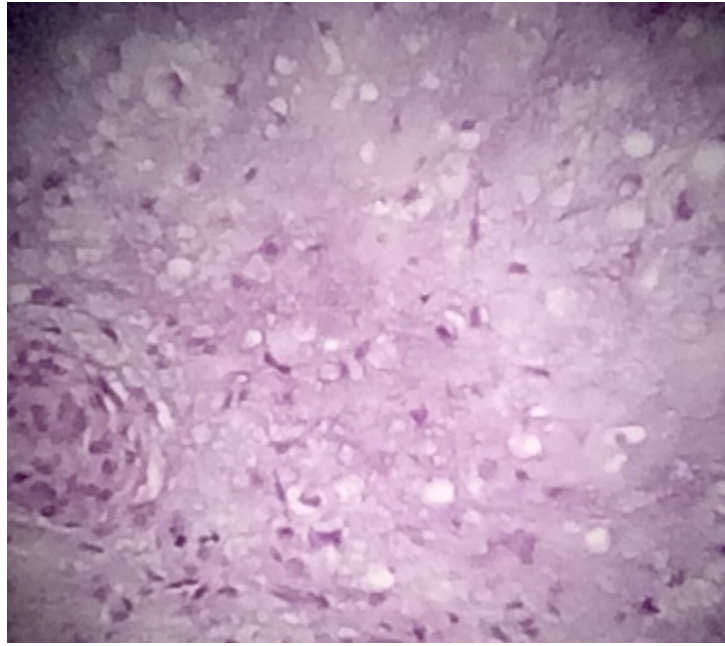


Şekil 3 : Boyun BT de retromolar trigondan başlayan, submandibuler bezin anteromedialine uzanan, vokal kord seviyesinde larenkse baskı yapan 7,5x4,5x6 cm boyutlarında kitle lezyonu

Hasta ince iğne aspirasyon biyopsisini kabul etmedi.

Operasyon için boyun diseksiyonu şartlarında hazırlık yapıldı. Genel anestezi altında geniş submandibuler insizyonla girildi, platizma geçilir geçilmez kitle üzerine düşüldü. Çevre dokulara yapışık olmayan, kolay diseke edilen kapsüllü kitlenin, submandibuler veya parotis glandı ile ilişkisi yoktu. Kitlenin kapsüllü ve kolay diseke olması nedeni ile intraoperatif frozen çalışmasına gerek duyulmadı. Operasyon sahası diren yerleştirilerek usulüne uygun kapatıldı. Baskılı pansuman yapıldı

Histopatolojik incelemede hyalin stroma içine uzanan epitel uzantılı adaları içeren, iğnemsis ve plasmositik myoepitelial hücreler görüldü. Malignite bulguları yoktu (Şekil 4).



Şekil 4 :Histopatolojik incelemede hyalin stroma içine uzanan epitel uzantılı adaları içeren, iğnemsis ve plasmositik myoepitelial hücreler.(HE x40)

Histolojik ve immunohistokimyasal çalışmalar negatif cerrahi sınırlar gösteren pleomorfik adenom olarak rapor edildi.

Tartışma

Uzun süreli boyun kitlesi yakınmasıyla başvuran hastanın tanısı histopatolojik raporlamayla pleomorfik adenom olarak kesinleşti. Pleomorfik adenomlar tüm tükürük bezi neoplazmaları içinde en sık görülen tümörlerdir.

Parotis'te görülen neoplazmaların %70'i, submandibuler gland'da görülenlerin %50'si pleomorfik adenomdur.

Parotis derin lobundaki büyük parafarengeal pleomorfik adenomlar bazen obstruktif sleep apneye yol açabilmektedir [11]. Olgumuzda gerek radyolojik, gerek operasyon sırasındaki bulgularımıza göre kitlenin parotis veya submandibuler gland ile ilişkisi yoktu.

Minör tükürük bezi tümörlerinin yaklaşık %45'ini pleomorfik adenom oluştururken sıklıkla dudak, yanak mukozası, ağız tabanı, dil, tonsil, farinks, retromolar trigon ve nazal kaviteden orjin alırlar [12,13]. Dil kökünden orjin alan

pleomorfik adenomların ilk bulgusu disfaji, odinofaji olabilmektedir [14,15]. Bazı pleomorfik adenomlar kapsülsüzdür ve malign tümörlere benzerlik gösterir. Pleomorfik adenomlar 4. ve 6. dekatlarda sık olup, 43-46 yaşlarda pik yapar [6,8].

Minör tükrük bezi orjinli pleomorfik adenoma çocukluk çağlarında da görülebilmektedir.

Histolojik olarak pleomorfik adenom epitelyal, miyoepitelyal ve stromal (mezenşimal) bileşenlerden oluşmaktadır. Pleomorfik adenomun ayırıcı tanısında apokrin mikst tümör, schwannoma, nörofibrom, hemanjiom, lenfanjiom, lipom, leiomyoma, rabdomiyom, rabdomiyosarkom ve kondrosarkom gibi tümörler akılda tutulmalıdır. Ektopik tükrük bezi dokularının çeşitli lokalizasyonlarda olabileceğini bilinmektedir. Olgumuzdaki pleomorfik adenomun ektopik bir tükrük bezinden gelişmiş olması muhtemeldir.

Olgumuzu, İngilizce literatürdeki minör tükrük bezlerinden kaynaklanan olgularla karşılaştırdığımızda; cinsiyetinin erkek oluşu literatüre göre farklılık göstermekte, 24 yaşıyla ortalamanın altında bulunmaktadır. Herhangi bir travma öyküsü olmaması ise literatürle uyumludur. Olgumuzun hikayesinde tümörün 17 yıllık süresiyle literatürden önemli bir farklılık göstermektedir. Bu durum tümörün 7 yaşlarından beri bulunduğunu gösterir ki, juvenil tip pleomorfik adenom grubunda kabul edilmesini gerektirir.

Minör tükrük bezinden orjin alan tümörlerin çoğu oral kaviteden gelişirken, olgumuzda tümör boyunda submandibuler alanda görülmektedir. Olgumuzun radyolojik görüntülemelerinde kitlenin retromolar trigona ve dil köküne kadar uzanım göstermesi, kapsüllü olup çevre dokulara invazyon göstermemesi, boyundan daha çok perioral bölgedeki bir minör tükrük bezinden orijin alabileceğini düşündürmektedir.

Pleomorfik adenomların klinik semptom ve bulguları ağrısız kitlelerin lokalizasyonuna spesifik özellikler göstermektedir. Olgumuzun tek şikayeti boyundaki kitle hissidir. Yutma ve fonasyon fonksiyonlarına herhangi bir etkisi görülmemiştir. Olguların tümünde tedavi olarak total eksizyon uygulanmıştır. Olgumuzun da radyolojisinde sınırlı, invazyon göstermeyen kitle lezyonu vardı ve cerrahi eksizyonunda diseksiyon kapsül boyunca klivaj hattında kolayca yapılabilmıştır.

Sonuç

Minör tükrük bezinden orjinli pleomorfik adenomlar çocukluk çağlarında da rapor edilmiştir. Juvenil pleomorfik adenomların klinik ve histopatolojik bulguları, tedavi prensipleri erişkinlerden farklılık göstermemektedir. Olgumuzun 17 yıllık uzun süreli kitle şikayetinin 7 yaşından beri oluşu ve submandibuler alanda yerleşip majör tükrük bezleriyle ilişki halinde olmayışı, tümörün juvenil minör tükrük bezi orjinli pleomorfik adenom olduğunu düşündürmektedir. Pleomorfik adenomların karşımıza boyun kitlesi olarak da çıkabileceği akılda tutulmalıdır.

Kaynaklar

1. Garcia B JR, et al. Mixed tumor(Pleomorphic adenoma)of head and neck,Typical and atypical pattern. An otorrinolaringol İbero Am.2000;27:333-40.
2. Lotufo MA, et al. Pleomorphic adenoma of the upper lip in a child. J Oral Sci 2008;50:225-8.
3. Ellis GL, Auclair PL , Gneep DR. Surgical pathology of salivary gland. Philadelphia:W.B.Saunders Co;199.
4. Rodrigues-Giunara J, Rodado.C, Saez M, Bassas C. Giand parotid pleomorphic adenoma the parapharyngeal space;report a case. J Oral Maxillofae Sur.2000;58.1184-7.
5. Johnson AT, Moran AG. Extra –Cranial tumors of the infratemporal fossa. J Laryngol Otol.1982;96:1017-26.
6. Van–Heerden WF, Raubenheimer EJ. İntraoral salivary gland neoplasm:a retrospective study of seventy

- cases in an african population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.*1991;71:579-82.
7. Toida M, et al. Intraoral minor salivary gland tumor:a clinicopatological study of 82 cases. *Int j Oral Makillofae.Surg.*2005;34:528-32.
 8. Wang D,et al. Intraoral minor salivary gland tumors in a Chinese population:a retrospective study on 737 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Radiol Endod.*2007 ;104:94-100.
 9. Lee PS, et al. Molecular evidence that the stromal and epithelial cells in pleomorphic adenomas of salivary gland arise from the same origin:clonal analysis using human androgen receptor gene(Humara)assay. *Hum Pathol.*2000;31:498-503.
 10. Kondo T. A case of lipomatous pleomorphic adenoma in the parotid gland . *Diagn Pathol.*2009;4:1.
 11. Kadan PD, Chuan HH J. *Maxillofae Oral surg.* 2015;14(3):532-7.
 12. Jeyanthi K, et al. Pleomorphic adenoma in the infra-temporal space,The first case report. *Head Neck Pathol.*2007;1:173-7.
 13. Kazikdas KÇ, Onal K, Ekinici N. Pathology quiz case 1: Apocrine mixed tumor of the skin. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2007;133(2):198.
 14. Yoshiara T, Suziki S. Pleomorfik adenoma of tongue base causing disphagia and disphagia *J Laryngol Otol* 2000;114:793-795
 15. Ghosh SK, Saha J, Chandra S,et al. Pleomorphic adenoma of the base of tongue:a case report. *Indian j Otolaryngol Head Neck Surg* 2011;63(suppl):113-114.

Sunum

38.Türk Ulusal Kulak Burun Boğaz ve Baş Boyun Cerrahisi Kongresi Basılı Poster Sunum, 26 - 30 Ekim 2016, Antalya/Belek