

Submandibuler Bezin Küttner Tümörü: Olgu Sunumu

Kuttner Tumor in Submandibular Gland: A Case Report

*Dr. Ayşe İRİZ, *Dr. Evrim DURMAZ, *Dr. Celil GÖÇER, **Dr. D.Tuğba ÜNAL,
*Dr. Engin DURSUN, *Dr. Adil ERYILMAZ

* Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, 3.KBB Kliniği,
** Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Kliniği, Ankara

ÖZET

Küttner tümörü diğer adıyla kronik sklerozan sialadenit, özellikle orta yaş erişkinlerin submandibuler bezlerinde görülen benign, inflamatuvar bir lezyondur. Klinik özellikleri nedeniyle tükrük bezi neoplazmları ile karışabilir. Küttner tümör T lenfosit immün reaksiyonuna bağlı olarak gelişebilir. Benign bir lezyon olduğu halde malign lezyonlara öncülük edebilir. Kliniğimize baş vuran 44 yaşındaki bir erkek hastadaki sağ submandibuler bezde Küttner tümörü tanısı nedeniyle bu olgu sunumu yapılmış ve ayırıcı tanısı tartışılmıştır.

Anahtar Sözcükler

Submandibüler bez, sialadenitis, kuttner tümörü

ABSTRACT

Kuttner tumor, also known as chronic sclerosing sialadenitis, is a benign inflammatory lesion especially seen in middle-aged adults. It may be difficult to distinguish it from the salivary duct neoplasia because of its clinical features. Kuttner tumor may arise due to T lymphocyte immune reaction. It may be a precursor of malignant lesions although it is a benign lesion. We report a case of Kuttner tumor in the right submandibular gland in a 44 years old male patient and discuss its differential diagnosis.

Keywords

Submandibular gland, sialadenitis, kuttner tumor

Çalışmanın Dergiye Ulaştığı Tarih: 25.06.2007

Çalışmanın Basıma Kabul Edildiği Tarih: 01.11.2007

≈

Yazışma Adresi

Dr.Ayşe İRİZ

Şenlik Mah.Sedefçiler Sok. 46/10 Keçiören /ANKARA

Telefon: 0 312 3814131-0 505 8580370

Faks: 0312 3121218

E-posta: aysecagri@mynet.com

GİRİŞ

Küttner tümörü diğer adıyla kronik sklerozan sialadenit, özellikle orta yaş erişkinlerin submandibuler bezlerinde görülen benign, inflamatuvar bir lezyondur.¹ Bu kitle özellikle submandibuler bezde sert şişlik şeklinde karşımıza çıkar. Klinik olarak gerçek bir neoplazmdan ayırımı güçtür. Hastalık hakkında yetersiz bilgi sahibi olunması tanıda hatalara neden olabilir ve hastalık atlanabilir.

Seifert'e göre Küttner tümörü histolojik olarak 4 evreye ayrılabilir:²

Evre 1. Yoğun sekresyon içeren ve bir miktar genişlemiş tükrük bezi duktusları çevresinde lenfosit yuvaları izlenen fokal kronik inflamasyon.

Evre 2. Daha belirgin diffüz lenfositik infiltrasyon ve periduktal fibrozis, duktal sistemde yoğun sekresyon ve duktal epitelyumde proliferasyonla birlikte fokal metaplazi, periduktal bölgede iyi gelişmiş lenfoid foliküller, lobüllerin merkezinde fibrozis ve asinüslerde atrofi görülür.

Evre 3. Daha yoğun lenfositik infiltrasyonla birlikte lenfoid folikül formasyonu, parankimal atrofi, periduktal hyalinizasyon ve skleroz, duktal sistemde skuamöz ve goblet hücre metaplazisi.

Evre 4. Siroza benzer belirgin parankimal kayıp ve skleroz ('Burnt out' fazı).

Bu olgu sunumunun amacı, bir Küttner tümörü vakasının sunumu ile klinik ve histolojik karakteristikleri hakkında bilgi sağlamaktır.

OLGU SUNUMU

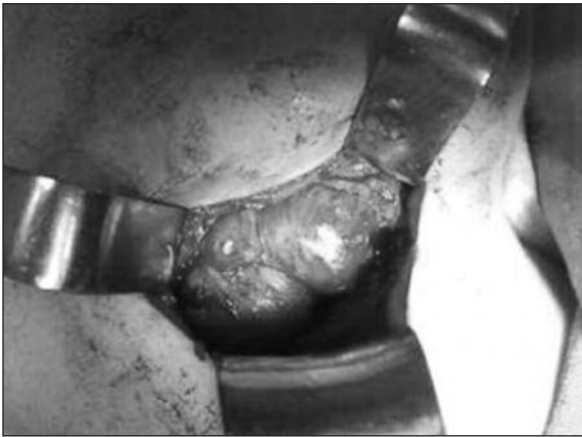
44 yaşında erkek hasta 2 yıldır süren sağ çene altında şişlik şikayeti ile Ankara Numune Hastanesi 3. Kulak Burun Boğaz kliniğine başvurdu. Hikayesinde şişlikte ara sıra ağrının olduğu ve medikal tedavi ile bu ağrı şikayetinin geçtiği belirtildi. Özgeçmişinde sigara ve alkol kullanımı öyküsü ve herhangi bir sistemik bir hastalık hikayesi yoktu.

Hastanın fizik muayenesinde sağ submandibuler bölgede sert bir kitle palpe edildi. Boyunda patolojik boyutta lenfadenopati saptanmayan hastanın, diğer kulak burun boğaz muayeneleri doğaldı. Boyun ultrasonografisi tetkikinde sağ submandibuler bezde atrofi, heterojenite ve ekojenitede azalma saptandı. Sol submandibule rbez ve her iki parotis bezi normal görünümde idi. Hastaya sağ submandibuler bez eksizyonu operasyonu yapıldı. Operasyon sırasında bez normalden sertti ve bilobule kontürlü olarak izlendi (Resim 1). Patolojik inceleme sonucu "Kronik sklerozan sialadenit" olarak raporlandı (Resim 2-3).

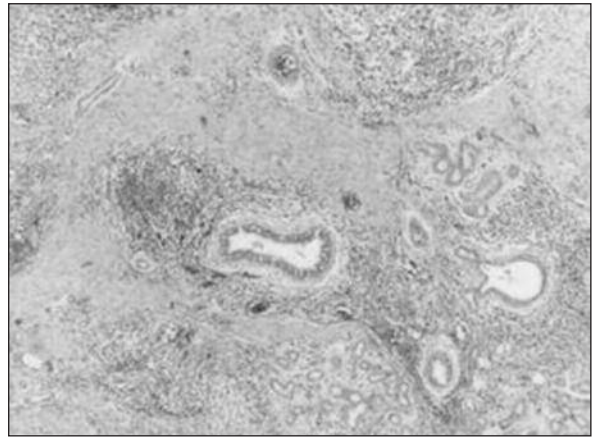
TARTIŞMA

Küttner tümörü genellikle submandibuler bezde sert şişlik şeklinde karşımıza çıkar.² Sıklığı tam olarak bilinmemekle birlikte 2005 yılında yazılan bir incelemede o güne kadar literatürde tanımlanmış 231 vaka-dan bahsedilmiştir.³

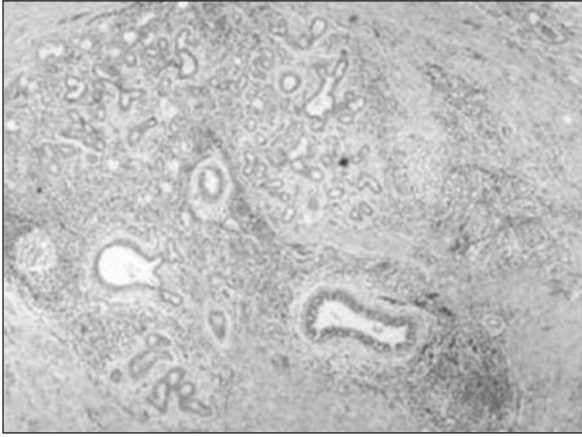
Küttner tümörü benign lenfoepitelyal lezyonlardan (Sjögren sendromu vb.), Kimura hastalığından, mu-



Resim 1. Operasyon sırasında sol supmandibüler bezin görünümü.



Resim 2. Fibrozis ve inflamasyon izlenen tükrük bezi. (HE ; X 100).



Resim 3. Atrofiye gitmiş duktuslar etrafında fibrozis ve yer yer lenfoid agregatlar oluşturmuş inflamatuvar hücre infiltrasyonu (HE; X100).

koza ile ilişkili lenfoid dokunun ekstranodal marjinal zone B hücreli lenfomasından ve inflamatuvar psödötümörden ayırt edilmelidir. Bu ayırımı epimyoepitelyal adaların olmaması veya çok az olması ve genellikle daha belirgin skleroz görülmesi ile yapılabilir.³

Kimura hastalığı, tükürük bezlerini tutan inflamatuvar, alerjik tümör benzeri lezyondur. Küttner tümörü ile kitle lezyonu oluşturması, asiner atrofi, skleroz, kronik inflamatuvar hücre infiltrasyonu, hiperplastik lenfoid follikül oluşumu ve nekroz görülmesi açısından benzerlik gösterir. Kimura hastalığında eozinofil infiltrasyonu belirgindir ve genellikle eozinofilik abse formasyonu vardır.⁴

Mukoza ile ilişkili lenfoid dokunun ektranodal marjinal zone B hücreli lenfoması ve Küttner tümörünün ikisinde de lenfoid follikül oluşumu görülür ancak lenfomadaki infiltrasyon atipi gösteren B hücreleri tarafından oluşturulurken, Küttner tümöründe infiltrasyon T hücresi ağırlıklıdır.⁵ Lenfomada infiltrasyon bezin lobuler septalarını bozarken, Küttner tümöründe lobül yapısının genel yapısı genellikle korunur.⁴

İnflamatuvar psödötümör, bezin lobüle yapısının görülmemesi ve spindle hücreli myofibroblastik komponentinin olması ile Küttner tümöründen ayrılır.⁶

Küttner tümörünün kaynağı birçok etyolojik faktöre bağlanmıştır. Sialolitiazis vakaların % 29-83'ünde saptanmıştır.⁷ Ancak taşın inflamatuvar sürecin bir nedeni yoksa sonucunu olduğu kesin değildir. Vakamızda tükürük bezinde taş saptanmamıştır. Ancak tükürük akışında herhangi bir obstrüksiyon olması ve sekresyonların stazı, asiner hücrelerde şişme, nekroz, duktal

dilatasyon, tükürük birikimi ve bunlara eşlik eden ödem ve inflamatuvar hücre infiltrasyonuna neden olabilir.⁸

Küttner tümöründe izlenen lenfoid yapılar üzerinde yapılan immünohistokimyasal çalışmalar, özellikle duktus ve asinüs yapıları ile yakın ilişkide bulunan bol miktarda sitotoksik T hücresi içerdiğini göstermiştir. B hücre reaksiyonu daha az belirgindir ve lenfoid folliküllerle sınırlıdır. T hücre ağırlıklı inflamatuvar infiltrat ile asinüs ve duktus yapıları arasında yakın ilişki saptanmıştır. Sitotoksik T hücrelerinin monoklonal ve oligoklonal popülasyonları ve histopatolojik davranışları, Küttner tümörünün intraduktal ajanlarca tetiklenen bir immün sürecin sonucu olabileceğini düşündürmektedir.⁹

İnce iğne aspirasyon biyopsisinde, kollajen ile sarılmış ve lenfoid hücrelerce infiltrasyona uğramış dağınık duktus yapıları, spesifik olmamakla birlikte klinik bulgularla birlikte değerlendirildiğinde yüksek oranda Küttner tümörünü düşündürür.¹⁰

Hastalar cerrahi öncesi ultrasonografik olarak değerlendirilebilir. Küttner tümörü tanısı alan hastaların ultrasonografik bulgularının incelendiği bir çalışmada, hastaların çoğunda bezde diffüz büyüme olduğu ve sirotik karaciğere benzer bir görünüm olduğu bildirilmiştir. Doppler ultrasonografik incelemede intraglandüler damar yapılarında yer değişikliği izlenmemiştir. Daha az oranda izlenen fokal lezyonlar, radyal dallanma gösteren vasküler yapılar içeren hipoekoik, heterojen kitle görülmüş ve ultrasonografinin Küttner tümörü ayırımında yardımcı olabileceği bildirilmiştir.¹¹

Literatürde kronik sklerozan sialadenit zemininde gelişen marjinal zon B hücreli lenfoma vakası bildirilmiştir. Kronik sklerozan sialadenitte mekanik duktus obstrüksiyonu ve parankimal hücrelerden antijen salınımı sonucu gelişen kronik immün stimülasyonun lenfoma gelişimi için zemin oluşturabileceği bildirilmiştir.¹²

SONUÇ

Küttner tümörün klinik olarak tükürük bezi neoplazmından ayırımı güç olabilir. Özellikle submandibuler bezde sert şişlik şeklinde kendini gösteren bu lezyon histopatolojik olarak özellikle erken evre lenfomalar özellikle mukoza ile ilişkili lenfoid dokunun (MALT) ektranodal marjinal zone B hücreli lenfoması ile karışabileceğinden, iyi ayırt edilmelidir. Her ne kadar ultrason ve ince iğne aspirasyon biyopsisi tanıda yardımcı olabilirse de, kesin tanı için bezin eksizyonu gerekebilir.

lir. Bu nedenle hastalarda şüphelenilen durumlarda bezin total olarak çıkarılıp histopatolojik incelemenin yapılması, özellikle immünhistokimyasal inceleme ile değerlendirilmesi gerekmektedir. Eğer tanı Küttner tü-

mörü ise ek tedaviye gerek yoktur. Tükürük bezi, özellikle submandibuler bezde sert kitle ile başvuran hastalarda ayırıcı tanıda Küttner tümörü de düşünülmesi gereken benign bir patolojidir.

KAYNAKLAR

1. Williams HK, Connor R, Edmondson H. Chronic sclerosing sialadenitis of the submandibular and parotid glands: a report of a case and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2000; 89:720-3.
2. Seifert G, Donath K. On the pathogenesis of the Kuttner tumor of the submandibular gland: analysis of 349 cases with sialadenitis of the submandibular gland. *HNO* 1977;25:81-92.
3. Larbcharoensub N, Pongtippan A. Bilateral Kuttner tumor of submandibular glands; a case report and review of the literature. *J Med Assoc Thai* 2005;88:430-5.
4. John KCC. Kuttner tumor (chronic sclerosing sialadenitis) of the submandibular gland: an underrecognized entity. *Adv Anatomic Pathol* 1998;5:239-51.
5. Catherine H, Edward D, Sunita B, Elliot A. Kuttner tumor (chronic sclerosing sialadenitis). *Am J Otolaryngol* 2002;23:394-7.
6. Williams SB, Foss RD, Ellis GL. Inflammatory pseudotumors of the major salivary glands: clinicopathologic and immunohistochemical analysis of 6 cases. *Am J Surg Pathol* 1992;16:896-902.
7. Harrison JD, Epivatianos A, Bhatia SN. Role of microliths in the aetiology of chronic submandibular sialadenitis: a clinicopathological investigation of 154 cases. *Histopathology* 1997; 31:237-51.
8. Kraut RA, Kessler HP. Management of chronic sclerosing sialadenitis incident to second-stage implant surgery. *Compendium* 1998; 9:610-5.
9. Tiemann M, Teymoortash A, Schrader C, Werner JA, Parwaresch R, Seifert G. Chronic sclerosing sialadenitis of the submandibular gland is mainly due to a T lymphocyte immune reaction. *Mod Pathol* 2002;15:845-52.
10. Wah Cheuk, MBBS, and John K.C. Chan, MBBS. Fine-Needle Aspiration Cytologic Findings of Seven Cases. *Am J Clin Pathol* 2002; 117:103-8
11. Ahuja AT, Richards PS, Wong KT, King AD, Yuen HY, Ching AS. Kuttner tumour (chronic sclerosing sialadenitis) of the submandibular gland: sonographic appearances. *Ultrasound Med Biol* 2003; 29:913-9.
12. Ochoa ER, Harris NL, Pilch BZ. Marginal Zone B-Cell Lymphoma of the Salivary Gland Arising in Chronic Sclerosing Sialadenitis(Küttner Tumor). *Am J Surg Pathol* 2001; 25:12-4.