KBB ve BBC Dergisi 19 (1):25-9, 2011

Uvulada Yerleşik Dev Pleomorfik Adenom: Olgu Sunumu

Huge Pleomorphic Adenoma Located in Uvula: Case Report

Dr. Ediz YORGANCILAR, Dr. Salih BAKIR, Dr. Müzeyyen YILDIRIM, Dr. Ramazan GÜN, Dr. Faruk MERİÇ

Dicle Üniversitesi Tıp Fakültesi, KBB AD, Diyarbakır

ÖZET

Tüm neoplazmların yaklaşık % 3'ü tükrük bezi tümörleri olarak görülür. Tükrük bezi neoplazmlarının %22'si ise minör tükrük bezlerinde oluşur. Pleomorfik adenom, majör ve minör tükrük bezlerinin en sık benign tümörüdür. Minör tükrük bezlerinden kaynaklanan pleomorfik adenomlar daha çok sert ve yumuşak damakta, takiben dudak, yanak mukozası, dil, ağız tabanı, tonsil, retromolar üçgen ve burun boşluğunda görülürler . Uvulaya yerleşik pleomorfik adenom oldukça azdır ve az sayıda olgu sunumları vardır. Bu makalede yutma güçlüğü, konuşma bozukluğu, horlama ve velofarengeal yetmezlik şikayetlerine neden olan uvula yerleşimli dev bir pleomorfik adenom olgusu sunuldu ve literatür gözden geçirildi. Uvulada yerleşik pleomorfik adenom olguları olmasına rağmen olgumuz bildirilen en büyük ve velofarengeal yetmezliğe neden olan ilk olgudur.

Anahtar Sözcükler

Adenom, pleomorfik; uvula; tükürük bezleri, minör

ABSTRACT

Salivary gland tumors represent about 3% of all neoplasms. Tumors of the minor salivary glands comprise 22% of salivary gland neoplasms. Pleomorphic adenoma is the most common benign tumor of the major and minor salivary glands. Pleomorphic adenomas originating from minor salivary glands mostly occur in the hard and soft palate followed by lip, buccal mucosa, tongue, floor of the mouth, tonsil, pharynx, retromolar trigone and nasal cavity. Pleomorphic adenoma located in uvula is extremely rare, and there are a only few case reports. In this article,we report a case of huge pleomorphic adenoma in the uvula, which caused dysphagia, speech disturbance, snoring and velopharyngeal insufficiency and review the literature. Although there are some case reports about pleomorphic adenomas originating from the uvula, this is the biggest one and the first one that caused velopharyngeal insufficiency.

Keywords

Adenoma, pleomorphic; uvula; salivary glands, minor

Çalışmanın Dergiye Ulaştığı Tarih: **03.12.2009** Çalışmanın Basıma Kabul Edildiği Tarih: **04.05.2010**

≈

Yazışma Adresi

Dr. Ediz YORGANCILAR

Dicle Üniversitesi Tıp Fakültesi, KBB AD, Diyarbakır

E-posta: edzyrg@hotmail.com

GİRİŞ

Minör tükrük bezleri, müköz ağırlıklı salgı yapan, oral kavite ve solunum yolu mukozasına yerleşik bezlerdir. Sayıları yaklaşık 600-1000 adet olup, bağımsız olarak bulunmaktadır.[1] Oral kavite içerisinde en yoğun olduğu yer sert ve yumuşak damaktır. Ayrıca paranazal sinüsler, dudak iç yüzlerinde, parotis kanalının ağıza açıldığı bölge çevresinde, yanak mukozasında, ağız tabanında, palatoglossal kıvrımda, tonsillerin üst kutubu çevresinde (Weber bezleri), dilin alt yüzünde, frenilum lingua çevresinde, palatin tonsiller içinde, hipofarenks, orofarenks, larenks, trakea, bronşlar ve üst solunum yolunun diğer bölümlerinde bulunabilmektedirler.[1,2] Ektopik olarak dış kulak yolu, orta kulak, temporal kemik, gözyaşı bezlerinde de bulunabilmektedir.[3,4] Minör tükrük bezlerinin en sık rastlanılan benign tümörü, majör tükrük bezlerinde olduğu gibi pleomorfik adenomdur. Pleomorfik adenoma en sık parotis yüzeyel lobunda rastlanırken (%85), daha düşük oranlarda minör tükrük bezlerinden köken aldığı bildirilmiştir (%7).[5] Pleomorfik adenomlara her yaşta rastlanabilir ancak çoğunlukla 4.-6. dekatta görülür. Kadınlarda biraz daha fazla görülmektedir. Sıklıkla ülserasyon göstermeyen, ağrısız ve yavaş büyüyen sert kitleler olarak kendini gösterirler.[5] Majör tükrük bezi kökenli pleomorfik adenomların aksine, intraoral yerleşimli minör tükrük bezinden gelişenler, yutma güçlüğü ve konuşma bozukluğu gibi şikayetlerin gelişmesi nedeniyle sıklıkla büyük boyutlara ulaşamadan tedavi edilirler.[6] Bu makalede, uvuladan köken alan, konuşma bozukluğu, yutma güçlüğü ve horlama şikayetlerine neden olan çok ileri boyutlara ulaşmış bir pleomorfik adenom olgusu sunulmuştur.

OLGU SUNUMU

Elli dört yaşında erkek hasta, yaklaşık altı yıldır küçük dilinde gittikçe büyüyen şişlik ve son bir yıldır gittikçe artan horlama, geceleri solunum sıkıntısı, katı gıdaları yutmada zorluk ve zaman zaman sıvı gıdaları yutma sırasında sıvı gıdanın burundan gelmesi şikayetleri ile kliniğimize başvurdu. Hastanın yapılan muayenesinde orofarenkste uvula üzerinde yer alan tüm orofarenksi kaplayan üzeri mukoza ile kaplı düzgün yüzeyli ağrısız kitle saptandı (Resim 1). Kitle hipofarenkse uzanmaktaydı ve yumuşak damak hareketlerini engellemekteydi. Diğer sistem muayeneleri ve kan tablosu normaldi. Yapılan manyetik rezonans görüntülemede , orofarenks üst düzeyinden başlayıp, dil köküne kadar uzanım gösteren, orofarenksi tama yakın dolduran, yumuşak damak ile ara planları izlenen, her iki palatin tonsili dışa doğru iten, yaklaşık 4.5x3.5 cm ölçülerinde T1A serilerinde hipointens, T2A serilerinde hiperintens, intravenöz kontrast madde injeksiyonu sonrası belirgin kontrast madde tutulumu gösteren kitle saptandı (Resim 2). Hasta genel anestezi altında operasyona alındı. Trendelenburg pozisyonunda ağız açacağı takılarak kitle ekspoze edildi. Mukozal insizyonu takiben kitle uvuladan ve yumuşak damaktan çevresindeki 4-5 mm yumuşak doku ile beraber rezeke edildi. Rezeksiyon sonrası kalan geniş mukoza kısmen korundu. Uvula kası, palatofaringeus kası ve palatoglossus kası mikroskop altında 3.5 kat büyütme ile ortaya konuldu. Uvula kası kitle tarafından atrofiye uğratılmıştı. Uvula kası ile palatofaringeus kası 4/0 vicryl ile dikilerek damak kas yapısının devamlılığı sağlandı. Daha sonra ko-

Resim 1. Uvulayı kaplayan dev kitle.

Resim 2. Koronal plan manyetik rezonans görüntülemede kontrast madde tutan heterojen hiperintens kitle.

runan mukoza karşılıklı dikilerek kas dokusunun üzeri kapatıldı (Resim 3). Hastanın velofarengeal yetmezliğinin oral alımın başladığı postoperatif birinci günde düzeldiği gözlendi. Postoperatif dönemde herhangi bir komplikasyon gelişmedi (Resim 4). Hastanın bir yıllık takibinde nükse rastlanmadı.

TARTIŞMA

Tüm tükrük bezleri neoplazmlarının yaklaşık %22'si minör tükrük bezlerinden kaynaklanır. Minör tükrük bezinde gelişen benign tümörlerin büyük çoğunluğunu majör tükrük bezlerinde olduğu gibi pleomorfik adenom oluşturmaktadır.[5] Pleomorfik adenom epitelyal ve mezodermal elemanlardan oluşan mikst bir tümördür. Tümörün tam olmayan bir kapsülü ve psödopod adı verilen uzantıları vardır. Psödopodlar rekürrensten sorumludur.

Minör tükrük bezlerinde yerleşen tümörlerin yarıdan fazlası sert ve yumuşak damakta görülür.[1] Bu bölge dışında sıklık sırasına göre dudak, yanak mukozası, ağız tabanı, dil, tonsil, farenks, retromolar bölge ve burun boşluğunda görülebilir.[1,7] Ağız içinde bazı bölgelerde ve ağız boşluğu dışında minör tükrük bezlerinin yer aldığı bölgelerde oldukça nadir rastlanılmaktadır. Mahore ve ark.[1] tonsil içine yerleşik bir olgu bildirmişlerdir. Tahlan ve ark.[8] burun septumu içine yerleşik pleomorfik adenoma olgusu yayınlamışlardır. Hakeem ve ark.[7] 2009 yılında yayınladıkları çalışmada parafarengeal bölgedeki minor tükrük bezlerinden gelişmiş pleomorfik adenoma olgusu bildirmişlerdir.

Resim 3. Kitle çıkarılıp uvuloplasti yapıldıktan sonraki görüntü.

Resim 4. Postoperatif uvulanın görünümü.

Uvulada yerleşik pleomorfik adenoma olgusu literatürde oldukça azdır. Motomura ve ark.[9] 2000 yılında uvulayı elonge ederek obstrüktif sleep apneye sebep olmuş bir olgu yayınlamışlardır. Fidan ve ark.[10] 2009 yılında otalji semptomuna sebep olmuş 1x1 cm boyutlarında uvulada yerleşik pleomorfik adenoma olgusu bildirmişlerdir. Olgumuz 4x4cm boyutları ile şu ana kadar bildirilen en büyük uvulada yerleşik pleomorfik adenoma olgusudur.

Minör tükrük bezlerinden gelişen tümörlerin bir özelliği de majör tükrük bezlerinin aksine malignite riskinin daha fazla olmasıdır. Bununla ilgili yapılan çok sayıda çalışmanın sonuçlarına göre minör tükrük bezlerinden gelişen tümörlerin benign olma olasılığı %35-%63 arasında değişmektedir.[1,6] Regezi ve ark.[11] geniş serilerinde minor tükrük bezi tümörlerinde malignite oranını %37 olarak saptamışlardır. Bu sebeple minor tükrük bezinde pleomorfik adenoma saptanırsa derhal cerrahi rezeksiyon uygulanmalıdır.

Tükrük bezi tümörlerinin tanısının konması, öykü ve fizik muayene yanında, radyolojik tetkikler ve histopatolojik incelemeden faydalanmayı gerektirir. Öyküde kitlenin yerleşim yerine göre şikayetler değişik olabilir ancak intraoral bölgede sık rastlandığı için yutma ve konuşma güçlüğü en sık karşılaşılabilecek şikayetlerdir. Ayrıca kulak ağrısı ve uyku apnesi şikayeti gelişen olgularda bildirilmiştir.[9,10] İntraoral pleomorfik adenomların ağrısız olması, çok yavaş büyümesi ve büyük boyutlara varmaması, kitlenin farkında olsalar bile, hastaların bir kliniğe başvurmakta gecikmelerine neden olabilir. Sunulan olguda hasta, konuşma ve yutma gibi fonksiyonları olumsuz etkileyen büyük bir kitle olduğu halde ancak altı yıl sonra kliniğimize başvurmuştur. Olgumuzda horlama ve yutma güçlüğü şikayetlerine ek olarak, velofarengeal yetmezlik şikayetleri mevcuttu. Olgumuz literatürde velofarengeal yetmezliğe sebep olan ilk olgudur. Bu semptomun gelişmesinin sebebi olarak tümörün kitle etkisiyle ve ağırlığıyla yumuşak

damak kaslarının yutkunma esnasında çalışmasını engellemesi olduğu düşünülmektedir. Zira bu semptom rezeksiyon ve yumuşak damak kas rekonstrüksiyonu sonrasında tamamen düzelmiştir.

Pleomorfik adenomlar muayene sırasında genellikle ülserasyon göstermeyen normal mukoza ile kaplı kitle olarak görülmektedir. Bilgisayarlı tomografi (BT) ve manyetik rezonans görüntüleme (MRG), tümörün boyutu ve yayılımını değerlendirmede faydalıdır. MRG, çevre dokularla sınırları daha iyi ayırtettiği için, BT'ye kıyasla bu tümörlerin tanısında daha güvenilir görünmektedir.[12] Kakimoto ve ark.[13], majör ve minör tükrük bezlerine yerleşik 50 pleomorfik adenomlu hastanın BT ve MRG tetkiklerini karşılaştırmışlar ve tümör kapsülünün MRG ile çok daha iyi görülebildiğini, bu sebeple tanıda MRG'nin daha faydalı olduğunu bildirmişlerdir.

Pleomorfik adenom hasta asemptomatik olsa bile mutlaka tedavi edilmelidir. Çünkü malign dejenerasyon gösterebilen bir tümördür. Değişik yayınlarda %3-%25 oranında pleomorfik adenomda malign dejenerasyon gelişebileceği belirtilmektedir.[3,5] Malign dejenerasyon üç tipte olabilir; karsinoma ex pleomorfik adenoma, karsinosarkom, metastaz yapan pleomorfik adenom.[14]

Pleomorfik adenomların tedavisi kitlenin tamamının bir miktar çevre doku ile beraber çıkarılmasıdır. Sadece tümörün çıkarılması her ne kadar benign bir tümör olmasına rağmen önerilmez. Çünkü cerrahi olarak pleomorfik adenomun çıkarılması esnasında tümörün ince ve tam olmayan kapsülünün yırtılıp çevre dokuya tümörün implantasyonu yoluyla veya yetersiz eksizyon nedeniyle bakiye doku kalmışsa lokal olarak rekürrens olabileceği gözardı edilmemelidir.[1,3,10] Bu nedenle geniş lokal eksizyon en uygun ve yeterli tedavidir. Rezeksiyon sonrasında bölgesel fleplerle ve değişik metodlarla rekonstrüksiyon yapılabilir. Primer olarak kapatılamayan büyük defektlerde, damak rekonstrüksiyonunda radial ön kol serbest flebi, palatal ada flebi, temporalis kas flebi, pektoralis majör myokutan flebi, cilt grefti ve uvulopalatal flepler kullanılabilir.[6] Fidan ve ark.[10] 2009 yılında yayınladıkları uvulada pleomorfik adenom olgusunu rezeksiyon sonrasında modifiye radyofrekans yardımlı uvulopalatoplasti tekniği ile rekonstrükte etmişlerdir. Sunulan olguda tümör, çevresindeki 4-5 mm yumuşak doku ile beraber rezeke edildi. Daha sonra kalan geniş mukoza kısmen korundu. Uvula kası, palatofarengeus kası ve palatoglossus kası mikroskop altında 3.5 kat büyütme altında ortaya konuldu. Uvula kası kitle tarafında atrofiye uğratılmıştı. Uvula kası ile palatofarengeus kası 4/0 vicryl ile karşılıklı dikilerek damak kas yapısının devamlılığı sağlandı. Daha sonra korunan mukoza karşılıklı dikilerek kas dokusu örtüldü. Postoperatif dönemde hipernasal konuşma, velofarengeal yetmezlik gözlenmedi. Ameliyat öncesi dönemde görülen disfaji, velofarengeal yetmezlik semptomları, cerrahi sonrasında tamamen düzeldi. Olgunun bir yıllık kontrollerinde tümör nüksüne rastlanmadı.

Uvulada yerleşik pleomorfik adenom olgusu oldukça azdır. Sunulan olgu 4x4 cm boyutuyla uvulada bildirilen en büyük pleomorfik adenom olgusudur. Aynı zamanda kitle etkisiyle yumuşak damak kaslarının çalışmasını engelleyerek velofaringeal yetmezliğe sebep olan ilk olgudur. Bu sebeple velofaringeal yetmezliği olan, obstrüktif uyku apne sendromu görülen hastalarda yumuşak damakla birlikte submukozal olarak yerleşebilen uvula kitleleri akılda tutulmalı ve bu bölge çok dikkatli muayene edilmelidir.

KAYNAKLAR

1. Mahore MN,Mrunal K, Pushpa J, Kumar V. Pleomorphic adenoma of the tonsil. Indian J Otolaryngol 1981;33(1): 45.
2. Gök Ü, Yalçın Ş, Kaygusuz İ, Keleş E, Çetinkaya T, Alpay HC. Tükürük Bezi Kitleleri: 112 Olgunun Analizi. Türk ORL Arşivi 2001;39(2):104-8.
3. Güney K, Fişenk F, Balkan E, Ağırdır BV, Dinç O. Pleomorphic adenoma of the minor salivary glands. Kulak Burun Boğaz ve Baş Boyun Cerrahisi Dergisi 1997;1(5):34-6.
4. Markou K, Karasmanis I, Vlachtsis K, Petridis D, Nikolaou A, Vital V. Primary pleomorphic adenoma of the external ear canal. Report of a case and literature review. Am J Otolaryngol 2008;29(2):142-6.
5. Clauser L, Mandrioli S, Dallera V, Sarti E, Galie M, Cavazzini L. Pleomorphic adenoma of the palate. J Craniofac Surg 2004;15(6):1026-9.
6. Gökçeer T, Toros SZ, Akkaynak Ç, Noshari HK, Zorlu A. A case of giant pleomorphic adenoma on palate. Kulak Burun Boğaz ve Baş Boyun Cerrahisi Dergisi 2004;12 (2): 85-8.
7. Hakeem AH, Hazarika B, Pradhan SA, Kannan R. Primary pleomorphic adenoma of minor salivary gland in the parapharyngeal space.World J Surg Oncol 2009;12(7):85.

8. Tahlan A, Nanda A, Nagarkar N, Bansal S. Pleomorphic adenoma of the nasal septum: a case report. Am J Otolaryngol 2004;25(2):118-20.
9. Motomura H, Harada T, Muraoka M, Taniguchi T. Elongated uvula with a pleomorphic adenoma: a rare cause of obstructive sleep apnea syndrome. Ann Plast Surg 2000;45(1):61-3.
10. Fidan V, Yoruk O, Sutbeyaz Y. Otalgia due to the pleomorphic adenoma of uvula. J Craniofac Surg 2009;20(2): 571-3.
11. Regezi JA, Lloyd RV, Zarbo RJ, McClatchey KD. Minor salivary gland tumors. A histologic and immunohistochemical study. Cancer 1985;55(1):108-15.
12. Ozturk E, Saglam O, Sonmez G, Cuce F, Haholu A. CT and MRI of an unusual intranasal mass: pleomorphic adenoma. Diagn Interv Radiol 2008;14(4):186-8.
13. Kakimoto N, Gamoh S, Tamaki J, Kishino M, Murakami S, Furukawa S. CT and MR images of pleomorphic adenoma in major and minor salivary glands. Eur J Radiol 2009; 69(3):464-72.
14. Furukawa M, Suzuki H, Matsuura K, Takahashi E, Suzuki H, Tezuka F.Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the palatal minor salivary gland with extension into the nasopharynx. Auris Nasus Larynx 2001;28(3):279-81.