

Szalony guz Whartina czy szalony pomysł chirurga? Dlaczego unikamy biopsji otwartych guzów przyusznicy?

Crazy Whartin tumor or crazy surgeon's idea? Why do we avoid an open biopsy of parotid tumors?

Ewelina Bartkowiak¹, Andrzej Kluk², Alicja Przybycin¹, Małgorzata Wierzbicka¹

¹Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej Uniwersytetu Medycznego im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

²Katedra Patomorfologii i Immunologii Klinicznej Uniwersytetu Medycznego im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

Streszczenie

Prezentujemy niezwykle rzadki przypadek infarcted Warthin tumor ślinianki przyuszniczej, którego przebieg kliniczny sugeruje nowotwór złośliwy. Po 3 latach obserwacji stabilnego w swoim rozmiarze guza doszło, bezpośrednio po wykonaniu biopsji otwartej zmiany, do gwałtownego, bujającego wzrostu nowotworu z owrzodzeniem skóry. Ponieważ różnicowanie infarcted Warthin tumor od innych nowotworów ślinianek stanowi ogromne wyzwanie dla klinicystów, zwracamy szczególną uwagę na najnowsze narzędzia diagnostyczne pomocne w rozpoznawaniu tego nowotworu już na poziomie diagnostyki przedoperacyjnej.

Słowa kluczowe: metaplastic (infarcted) Warthin tumor, guz gruczołu ślinowego, BACC, biopsja otwarta, gruczolak wielopostaciowy, ultrasonografia wzmocniona kontrastem.

Abstract

We present an extremely rare case of an infarcted Warthin tumor of the parotid gland, which mimics a malignant tumor. The stable tumor was observed for three years, but after open biopsy, the patient reported rapid, rocking tumor growth with skin ulceration. The differentiation of infarcted Warthin tumors from other salivary gland tumors poses a huge challenge for clinicians, thus special attention is paid to the latest diagnostic tools that help to identify this tumor at the preoperative stage.

Key words: metaplastic (infarcted) Warthin tumor, salivary gland tumor, FNAC, open biopsy, pleomorphic adenoma, contrast-enhanced ultrasonography.

(*Postępy w Chirurgii Głowy i Szyi 2021; 1: 7–10*)

Wprowadzenie

Opisany przez Hildebranda w 1895 r. guz Warthina (Warthin tumor – WT), znany również jako *cystadenolymphoma*, jest drugim najczęstszym nowotworem łagodnym gruczołów ślinowych [1, 2]. Stanowi ok. 15% wszystkich pierwotnych guzów nabłonkowych ślinianki przyuszniczej [3]. Poza ślinianką WT jest bardzo rzadki i może występować w węzle okołoprzyusznym, gardle i jamie ustnej [4, 5]. Histologicznie charakteryzuje się gęstym podścieliskiem limfoidalnym i podwójną war-

stwą nabłonka onkocytarnego z brodawkowatym i torbielowatym wzorem cytoarchitektury [3, 5].

W przeszłości wszystkie WT były leczone chirurgicznie, ale ze względu na ich powolny wzrost, często minimalne objawy kliniczne i zaawansowany wiek wielu pacjentów stopniowo coraz szerzej stosowano aktywną obserwację [2]. Aby wybrać tę opcję postępowania, diagnoza WT musi być wiarygodna, potwierdzona przez dane kliniczne, obrazowe i cytologiczne z punkcji cienkoigłowej (PCI) [2]. W piśmiennictwie nie znaleziono publikacji dotyczących uzyskiwania materiału do bada-



nia histologicznego poprzez nacięcie guzów pokrytych niezmienną skórą, pomimo zastosowania wielu kombinacji hasel indeksowych (WT, guz łagodny przyusznicy, guz okolicy przedusznej, guz kąta żuchwy, biopsja, biopsja cienkoigłowa lub gruboigłowa, nacięcie, biopsja otwarta). Guz Warthina jest nowotworem przesuwalnym względem skóry i podłoża. Zmiany troficzne skóry pokrywającej guz są rzadkie, choć niewykluczone, że z powodu możliwości ulegania stanom zapalnym [6]. Guz z owrzodzeniem otaczającej skóry jest niezwykle rzadki, co utrudnia odróżnienie od raka ślinianki przyusznej w warunkach klinicznych [6].

Opis przypadku

Przedstawiamy 64-letniego mężczyznę z guzem w lewej śliniance przyusznej, stopniowo powiększającym się od 3 lat. Po 2 latach samoobserwacji pacjent rozpoczął diagnostykę zmiany. Wykonano punkcję aspiracyjną cienkoigłową pod kontrolą ultrasonograficzną i wysunięto podejrzenie WT, wyniki nie były jednak w pełni diagnostyczne. Rok później w najbliższym ośrodku wykonano nacięcie w celu pobrania materiału do badania histologicznego, co wywołało gwałtowne powiększenie masy z owrzodzeniem skóry. Ponadto po zabiegu pojawił się krwiak, a po usunięciu szwów skórnych utrzymywało się krwawienie z rany oraz ciągły stan zapalny z wyciekami ropnej wydzieliny. Otrzymał wynik histopatologiczny: guz Warthina. Pacjenta skierowano do Kliniki Otolaryngologii o wyższej referencji. Ze względu na rozmiar guza, owrzodzenie skóry, defekt kosmetyczny, stan zapalny oraz życzenie pacjenta wykonano parotidektomię z usunięciem guza. Preparując metodą *retrograde* wzdłuż obwodowych gałązek

nerwu twarzowego, wycięto olbrzymi guz o wymiarach 7 × 12 cm wraz z płatem powierzchownym i głębokim ślinianki. Pozostawiono tylko górny fragment miększu ślinianki z regionu I. Guz leżał bezpośrednio na pniu, obwodowych gałązkach nerwu twarzowego i żyłach żuchwowej. Wraz z guzem w jednym bloku usunięto również naciezoną skórę policzka lewego. Otrzymano ostateczny wynik histopatologiczny: guz Warthina z nasilonymi zmianami wstecznymi i rozległymi świeżymi wylewami krwawymi, metaplastją nabłonkową oraz ogniskową martwicą – *metaplastic (infarcted) Warthin tumor*. Stwierdzono ponadto ogniskowo wykładniki przewlekłego, częściowo ropnego zapalenia z cechami obrzęku. Guz powoduje owrzodzenie skóry. W tkance podskórnej w pobliżu guza obecny jest ropień w trakcie organizacji. Z wymazu bakteriologicznego z guza otrzymano: *Pseudomonas aeruginosa* (ryc. 1, 2).

Omówienie

Guz Warthina z owrzodzeniem otaczającej skóry jest niezwykle rzadki, co utrudnia odróżnienie od raka ślinianki przyusznej w warunkach klinicznych [6]. Przedstawiamy unikalny przypadek WT z rozległym owrzodzeniem skóry i rozrostem mas ziarninowych bujących jak ukwiał, drugi w literaturze angielskiej [7]. Z najwyższym prawdopodobieństwem do gwałtownej progresji doszło po biopsji otwartej guza. Ponieważ ten wyjątkowy obraz kliniczny TW może być wywołany działaniem jatrogennym, omawiamy najnowsze doniesienia literaturowe dotyczące diagnostyki różnicowej guzów przyusznic z podkreśleniem efektywnego rozpoznawania opartego na badaniach obrazowych i PCI.



Rycina 1. Obraz kliniczny guza Warthina po wykonaniu biopsji otwartej



Rycina 2. Pole operacyjne przygotowane do zabiegu – zaznaczono zakres resekcji skóry



Diagnostyka guzów przyusznic ma na celu wstępne rozróżnienie guza złośliwego i łagodnego oraz wstępne rozpoznanie różnicowe gruczolaka wielopostaciowego (PA) od TW, gdyż wyłącznie w tym ostatnim przypadku można odroczyć leczenie chirurgiczne lub skierować chorego do czujnej obserwacji [2].

Pierwszym, wstępnym, podstawowym i powszechnie dostępnym badaniem obrazowym jest ultrasonografia, w której cechy sonograficzne poszczególnych guzów ślinianek zostały dobrze opisane i są szeroko wykorzystywane [8, 9]. Uzupełnienie może stanowić ultrasonografia wzmocniona kontrastem (CEUS) z zastosowaniem Sonazoidu; wykazano jej przydatność w różnicowaniu gruczolaków i TW [10].

Ilościowy dynamiczny rezonans magnetyczny (MRI) ze wzmocnieniem kontrastowym i segmentacją odczytu zmiennej długości oraz dyfuzją obrazów pozwala na precyzyjne różnicowanie charakteru guzów ślinianek przyusznych [11]. Intensywność sygnału T1-zależnych obrazów w MRI z wykorzystaniem analizy ilościowej ma wysoką wartość diagnostyczną w różnicowaniu pomiędzy WT i PA oraz WT a MT (*malignant tumors*), a także pomiędzy PA i MT. W różnicowaniu wykorzystuje się odmienny współczynnik maksymalnej intensywności sygnału T1 dla guza w porównaniu ze średnią intensywnością sygnałów rdzenia kręgowego (T1-max-SIRs) [12]. Badanie MRI w obrazach T1-zależnych umożliwia uczenie maszynowe do opracowania schematu oceny diagnozowania guzów ślinianek przyusznych, a wyniki eksperymentalne wykazały, że dokładność ostatecznego algorytmu w diagnostyce i ocenie stopnia zaawansowania raka ślinianki przyusznej jest wysoka (82,18%) [13].

Kolejnym krokiem jest skonstruowanie sygnatury radiomicznej na podstawie podwójnego lub potrójnego modelu zbudowanego na podstawie danych demograficznych i cyfrowej obróbki obrazów MRI. Cechy radiomiki wyodrębnione z osiowych obrazów T1WI i fs-T2WI oraz czynniki kliniczne posłużyły do oceny guza, marginesu i różnicowania typu histologicznego nowotworu [14]. Podobny model radiomiczny opracowano, opierając się na obrazach T2-zależnych [15]. Nomogram radiomiczny łączy niezależne czynniki kliniczne oraz wynik „Rad-score” i pozwala zoptymalizować podejmowanie decyzji klinicznych [16].

Aspiracyjna punkcja cienkoigłowa to najbardziej opłacalny i minimalnie inwazyjny sposób oznaczania charakteru guza ślinianki przyusznej. Czułość PCI w diagnostyce TW wynosi 93%, swoistość 94,8%, a dokładność 94,6% [17]. Ocenę trafności diagnostycznej gruczolaka wielopostaciowego i TW poprawiono poprzez wykorzystanie systemu Milano do raportowania cytopatologii gruczolów ślinowych, który powstał na podstawie badań międzynarodowych i wieloinstytucjonalnych [18].

Pomimo coraz powszechniejszego stosowania czujnej obserwacji WT istnieją cztery wyraźne wskazania

do podjęcia operacji: niepewna diagnoza, problemy kosmetyczne, dolegliwości kliniczne, takie jak ból, owrzodzenie lub nawracające stany zapalne guza, oraz życzenie pacjenta [5, 19]. W prezentowanym przypadku bezwzględny wskazaniem do pilnego leczenia były wszystkie powyższe przesłanki.

Podsumowując, w przypadku wątpliwości w rozpoznaniu guza przyusznicy konieczna jest wielostopniowa diagnostyka, zgodna z medycyną opartą na dowodach – metody podstawowe (USG, PCI) a następnie zaawansowane techniki radiologiczne (MRI, radiomika). Powyższy przypadek wskazuje na niedogodności prowadzenia takiej diagnostyki w ośrodkach lokalnych o znikomym doświadczeniu, które trudno nabyć przy kilku przypadkach diagnozowanych i leczonych rocznie. Kontynuacja diagnostyki poza ośrodkiem onkologicznym może prowadzić do kroków nietypowych, takich jak nacinanie zmiany, co skutkuje dalszym bardzo nietypowym przebiegiem klinicznym guza.

Piśmiennictwo

1. Teymoortash A. Back to the roots of Warthin's tumor of the parotid gland. *Euch Arch Otorhinolaryngol* 2013; 270: 2397-402.
2. Quer M, Hernandez-Prera J, Silver C, et al. Current trends and controversies in the management of warthin tumor of the parotid gland. *Diagnostics* 2021; 11: 1467.
3. Chulam TC, Noronha Francisco AL, Goncalves Filho F, et al. Warthin's tumor of the parotid gland: our experience. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2013; 33: 393-7.
4. Petrocelli M, Sbordon C, Salzano G, et al. Incidental finding of upper lip Warthin tumor. *Ann Ital Chir* 2017; 6: S2239253X17027578.
5. Iwai T, Baba J, Murata S, et al. Warthin tumor arising from the minor salivary gland. *J Craniofacial Surg* 2012; 23: e374-6.
6. Yorita K, Nakagawa H, Miyazaki K, et al. Infarcted Warthin tumor with mucoepidermoid carcinoma-like metaplasia: a case report and review of the literature. *J Med Case Rep* 2019; 13: 12.
7. Hung C, Kang B, Wang J, et al. Ulcerative Warthin tumor: a case report and review of the literature. *Ear Nose Throat J* 2020; 145561320957574.
8. Onkar P, Ratnaparkhi C, Mitra K, et al. High-frequency ultrasound in parotid gland disease. *Ultrasound Q* 2013; 29: 313-21.
9. Gerwel A, Kosik K, Jurkiewicz D. US in preoperative evaluation of parotid gland neoplasms. *Otolaryngol Pol* 2015; 69: 27-33.
10. Saito D, Shiga K, Katarigi K, et al. Contrast-enhanced ultrasonography for the differential diagnosis of pleomorphic adenomas and Warthin tumors in salivary glands. *Laryngoscope Investig Otolaryngol* 2021; 6: 425-31.
11. Jia C, Cao R, Kuai X, et al. Conventional and functional MRI features of parotid Warthin tumor: correlation with clinicopathological findings. *Zhonghua Kou Qiang Yi Xue Za Zhi* 2019; 54: 94-100.
12. Wei P, Shao C, Huan T, et al. Diagnostic value of maximum signal intensity on T1-weighted MRI images for differentiating parotid gland tumours along with pathological correlation. *Clin Radiol* 2021; 76: 472.e19-25.
13. Xia X, Feng B, Wang J, et al. Deep learning for differentiating benign from malignant parotid lesions on MR images. *Fron Oncol* 2021; 11: 632104.
14. Shao S, Zheng N, Mao N, et al. A triple-classification radiomics model for the differentiation of pleomorphic adenoma, Warthin tumour, and malignant salivary gland tumours on the basis of diffusion-weighted imaging. *Clin Radiol* 2021; 76: 472.e11-8.
15. Gabelloni M, Faggioni L, Attanasio S, et al. Can magnetic resonance radiomics analysis discriminate parotid gland tumors? A Pilot Study. *Diagnostics* 2020; 10: 900.



16. Zheng Y, Li J, Liu S, et al. MRI-based radiomics nomogram for differentiation of benign and malignant lesions of the parotid gland. *Eur Radiol* 2021; 31: 4042-52.
17. Zahran M, Alsedra S, Cope D, et al. The role of FNAC in the diagnosis and management of Warthin tumour: analysis of 74 cases. *Int Arch Otorhinolaryngol* 2021; 25: e379-82.
18. Onken A, Nishino M. Assessing the diagnostic accuracy for pleomorphic adenoma and Warthin tumor by employing the Milan System for Reporting Salivary Gland Cytopathology: an international, multi-institutional study. *Cancer Cytopathol* 2021; 129: 405.
19. Fikova A, Kuchar M, Kalfert D, et al. Experience with follow-up strategy in selected patients with Warthin tumour diagnosed by ultrasound-guided fine-needle aspiration biopsy (FNAB). *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2021; doi: 10.1007/s00405-021-06959-3.

Adres do korespondencji:

Ewelina Bartkowiak
Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej
Uniwersytet Medyczny im. Karola Marcinkowskiego
ul. Przybyszewskiego 49
60-355 Poznań
e-mail: ewelina.anna.bartkowiak@gmail.com

