

## Steroide yanıt veren reküren siyaladenit şeklinde ortaya çıkan atipik seyirli parotis bezi lenfoması: Olgu sunumu

### A parotid gland lymphoma presenting with steroid-responsive recurrent sialadenitis: a case report

Dr. Ahmet Köybaşıoğlu,<sup>1</sup> Dr. Mustafa Çolak,<sup>1</sup> Dr. Nalan Akyürek,<sup>2</sup> Dr. Yusuf Kızıl,<sup>1</sup> Dr. Utku Aydil<sup>1</sup>

Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi <sup>1</sup>Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı, <sup>2</sup>Patoloji Anabilim Dalı, Ankara, Türkiye

Parotis bezi yerleşimli lenfomalara nadir olarak rastlanır. Tükürük bezi yerleşimli lenfomalar en sık B hücre tipindeki MALT (mucosa-associated lymphoid tissue) lenfomalardır. Bunlar arasında en sık görülen patoloji ise ektranodal marjinal zon B hücreli lenfomalardır. Genellikle parotis bezinde ağrısız şişlik şeklinde ortaya çıkarlar. Tanı çoğunlukla parotidektomi ile konur. Bu yazıda, üç yıldır sistemik steroid tedavisine iyi yanıt veren ve tedavi kesildikten sonra tekrarlayan siyaladenit atakları ile başvuran 46 yaşında bir erkek hasta sunuldu. Hastaya reküren parotit ön tanısı ile kesin tanı ve tedavi amaçlı total parotidektomi planlandı. Yüzeysel parotidektomi sırasında yapılan donuk kesit biyopsi incelemesi sonrası lenfoma tanısı konuldu ve ameliyata son verildi.

**Anahtar Sözcükler:** Lenfoma; parotis bezi; parotis neoplazmları; siyaladenit.

Parotid gland located lymphomas are rarely seen. The most common lymphomas involving salivary gland include B-cell MALT (mucosa-associated lymphoid tissue) lymphomas. Of them, extranodal marginal zone B-cell lymphomas are the most frequently seen pathologies. They usually present with painless swelling of the parotid gland. The diagnosis is often based on parotidectomy. In this article, we report a 46-year-old male patient who was admitted with recurrent sialadenitis attacks which responded well to steroid treatment for three years, but recur after the cessation of the therapy. With the initial diagnosis of recurrent parotitis, the patient was scheduled for total parotidectomy for the definitive diagnosis and treatment. When the frozen-section of specimens during superficial parotidectomy revealed lymphoma, the operation was terminated.

**Key Words:** Lymphoma; parotid gland; parotid neoplasms; sialadenitis.

Lenfomaların primer olarak parotis bezine yerleşimi çok nadir olduğu gibi parotis bezinde yerleşen bir tümörün lenfoma olma olasılığı da çok azdır. Ancak primer tükürük bezi lenfoması olan olguların çoğu majör tükürük bezlerinde, bunların da büyük bir kısmı parotis bezinde yerleşim

gösterir.<sup>[1-3]</sup> Parotis bezinde yerleşim gösteren lenfomaların büyük bir kısmını B hücre tipindeki lenfomalar oluşturmaktadır.<sup>[4-5]</sup> Parotis bezi lenfomaları genellikle 6-7. dekadlarda ortaya çıkar ve kadınlarda daha fazla görülür; çocukluk çağında ise nadirdir.<sup>[5]</sup>

Geliş tarihi / Received: 4 Kasım 2011 Kabul tarihi / Accepted: 18 Ocak 2012

İletişim adresi / Correspondence: Dr. Utku Aydil. Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı, 06500 Beşevler, Ankara, Türkiye. Tel: +90 312 - 202 64 47 Faks (Fax): +90 312 - 202 43 57 e-posta (e-mail): utkuaydil@yahoo.com

33. Ulusal Kulak Burun Boğaz Baş ve Boyun Cerrahisi Kongresi'nde poster olarak sunulmuştur 26-30 Ekim 2011, Antalya (Presented at the 33th Turkish National Congress of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, October 26-30, 2011, Antalya, Turkey).

Parotis bezi lenfomaları hemen her zaman izole olarak veya boyun kitleleri ile beraber parotis bezinde ağrısız kitle ile ortaya çıkarlar. Burada oldukça atipik olarak, reküren siyaladenit kliniği ile başvuran, steroid tedavisine oldukça iyi yanıt veren bir parotis lenfoma olgusu sunulmaktadır.

### OLGU SUNUMU

Kırk altı yaşında erkek hasta üç yıldır sağ kulağının önünde ve çene altında sertlik yakınması ile kliniğimize başvurdu. Hastanın sağ parotis bölgesinde üç yıldır sık tekrarlayan ağrı ve ateş atakları olduğu, sertliğin zamanla arttığı öğrenildi. Hasta, defalarca ağızdan steroid tedavisi uygulandığını, steroid tedavisi sonrası ateş ve ağrı gibi yakınmaların geçtiğini ancak steroid tedavisi kesildikten kısa bir süre sonra yakınmaların tekrar ortaya çıktığını anlattı. Daha önce başka merkezlerde birkaç kez parotisten iğne biyopsisi ve bir kez sağ submandibüler tükürük bezinden insizyonel biyopsi alındığı ancak kesin tanı konulmadığı ve kronik siyaladenit lehine sonuçlar alındığı öğrenildi. Hastanın tıbbi geçmişinde bir özellik yoktu. Yapılan fizik muayenede sağ parotis bezinin aşırı derecede sert ve fibrotik olduğu, üzerinde palpasyonla hafif hassasiyet ve ciltte hafif hiperemi olduğu saptandı (Şekil 1). Sağ submandibüler bölgede insizyon skarı ve sağ submandibüler bezde sertlik ve hafif hipertrofi vardı. Yapılan rutin laboratuvar testleri normaldi. Hastanın ultrasonografik incelemesi neticesinde sağ parotis bezinde 6x2.5 cm çaplı irregüler sınırlı heterojen solid lezyon rapor edildi. Manyetik rezonans incelemesinde ise sağ parotis bezinde belirgin boyut artışına neden olan, diffüz kontrast tutulumu gösteren, infiltratif nitelikte bir lezyon saptandı ancak belirgin bir kitle lezyonu

saptanamadığından bulgular radyolog tarafından kronik parotit lehine yorumlandı. Hastaya kronik parotit ön tanısı ile total parotidektomi planlandı. Ameliyatta parotis fasyasının cilt ve cilt altı dokulara yapışık olduğu ve tüm parotis dokusunun oldukça sert ve kirli beyaz renkli bir doku halinde olduğu görüldü. Yüzeysel parotidektomi sırasında donuk biyopsi çalışması yapıldı. İnceleme sonucunda lenfoma tanısı konulunca yüzeysel parotidektomi aşamasında ameliyata son verildi. Ameliyat sonrası dönemde herhangi bir sorun yaşanmadı. Cerrahi örneğin histopatolojik inceleme neticesinde de ektranodal marjinal zon B hücreli lenfoma tanısı konuldu (Şekil 2). Hasta tedavi ve takibi için medikal onkoloji bölümüne yönlendirildi.

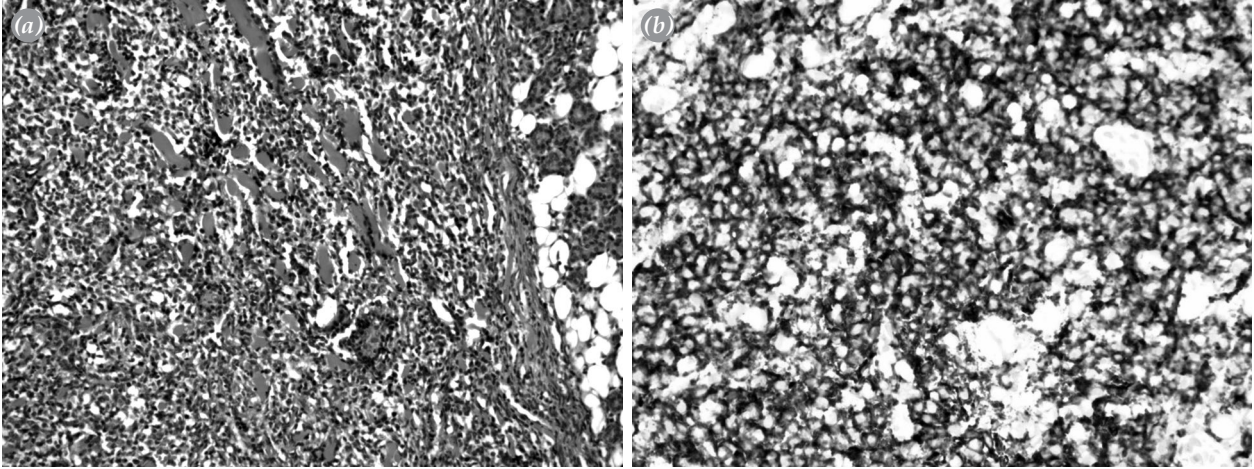
### TARTIŞMA

Lenfomalar tüm tükürük bezi tümörlerinin %2-5'ini ve majör tükürük bezlerinde yerleşim gösteren malignitelerin %2-8'ini oluştururlar.<sup>[5-7]</sup> Tüm primer ektranodal malign lenfomaların %5'inde majör tükürük bezi tutulumu görülür.<sup>[5-7]</sup> Tükürük bezi lenfomaları çoğunlukla ağrısız, progresif büyüyen kitle olarak ortaya çıkar.<sup>[3,8,9]</sup> Birçok tükürük bezi lenfoması B hücreli non-Hodgkin lenfomalardır ancak nadiren T hücreli lenfomalar da görülebilir.<sup>[5,8,9]</sup> Birçok lenfoma alt tipi parotis bezinde görülebilir ama en sık ektranodal marjinal zon B hücreli lenfomalar görülür. Sırası ile bunu foliküler ve diffüz büyük B hücreli lenfomalar takip eder.<sup>[5]</sup>

Parotis bezi lenfomaları genellikle 6. ve 7. dekadlarda görülmektedir. Kadınlarda erkeklere göre daha fazla görülür, çocuklarda ise nadirdir.<sup>[5]</sup> Anacak ve ark.<sup>[10]</sup> çalışmalarında primer parotis lenfomalarının kadınlarda erkeklere oranla üç



Şekil 1. Sağ parotis bezindeki şişliğin ve üzerinde yer alan ciltteki eritemin klinik görünümü.



Şekil 2. (a) Epitelin sentrosit benzeri lenfoid hücreler ve monositoid B hücreleri tarafından yoğun infiltrasyonu (H-E x 200). (b) Neoplastik lenfoid infiltratın CD20-pozitif hücrelerden oluştuğu görülmekte (CD20 x 200).

kat daha sık görüldüğünü bildirmişlerdir. Kojima ve ark.<sup>[11]</sup> da primer parotis bezi lenfomalarının kadınlarda 1.7 kat daha sık görüldüğünü bildirmişlerdir.

Primer parotis bezi lenfoması olguları genellikle kulak önünde veya etrafında ağrısız şişlik ile başvururlar.<sup>[12,13]</sup> Çoğu olguda başlangıçta lenfomadan şüphe edilmez ve tanı genellikle parotidektomi ile elde edilen doku biyopsisi sonucunda konur. Roh ve ark.<sup>[8]</sup> yaptıkları bir çalışmada 12 primer tükürük bezi MALT (mucosa-associated lymphoid tissue) lenfomalı hastanın yedisinde klinik değerlendirme ve ince iğne aspirasyon biyopsisi ile lenfoma tespit edilemediğini ve benign lezyon tanısı konduğunu bildirmişlerdir. Bizim hastamızın da daha önceleri birçok kez yapılan ince iğne aspirasyon biyopsileri ile kesin tanı konulamamış, ameliyat öncesi lenfoma tanısı düşünülmemiş, ameliyat sırasında gönderilen donuk biyopsi ve ameliyat sonrasında incelenen parafin kesitler ektranodal marjinal zon B hücreli lenfoma tanısının konulabilmesini sağlamıştır.

Primer parotis bezi lenfomalarında cerrahi hem lokalize tümörlerde tedaviye yardımcı olmak için hem de tanı ve tedavi planlanması açısından yararlıdır.<sup>[14]</sup> Toso ve ark.<sup>[6]</sup> yapmış oldukları bir çalışmada lokalize primer tükürük bezi lenfomalı dört hastada tedavi olarak sadece cerrahi eksizyon uygulamış, yaklaşık üç yıllık takiplerde nüks bildirmemişlerdir. Fakat lokal tedaviler sonrası yüksek oranda nükslere de rastlanabildiği bildirilmiştir.<sup>[15]</sup> Wenzel ve ark.<sup>[15]</sup> göre baş ve boyuna yerleşmiş MALT len-

fomalarda herhangi bir lenf nodu yayılımı veya başka bir tutulum olmasa bile tek başına lokal tedavi hastalığın erken yayılımı için yüksek risk teşkil etmektedir.

Primer parotis bezi lenfoması çok sık görülmele birlikte ileri yaş hastalarda ve olgumuzda da olduğu gibi orta yaşlı hastalarda parotis bezi kaynaklı kitlelerin ayırıcı tanısında unutulmamalıdır. Rekürren parotit olgularında ve steroide iyi yanıt alınan durumlarda altta yatan neden otoimmün veya romatolojik kökenli bir durum olabileceği gibi sunulan olguda da görüldüğü gibi lenfoma da olabilmekte ve tanı gecikebilmektedir. Sunulan olguda olduğu gibi parotis lenfomalarında atipik seyir söz konusu olabilir. Tükürük bezi MALT lenfomalarında tekrarlayan tükürük bezi şişmeleri bildirilmiştir ve kronik enflamatuvar bir süreç görülebilir.<sup>[8]</sup> Böyle bir olguda ayırıcı tanıda yer alacak bir diğer antite kronik sklerozan siyaladenittir.<sup>[16]</sup> Kronik sklerozan siyaladenit daha çok submandibüler bezi tutan bir hastalıktır ancak kesin ayırım için yine de cerrahi eksizyon ve dikkatli bir histopatolojik inceleme şarttır. Steroidler lenfoma tedavisinde de kullanılan güçlü antienflamatuvar etkinliği olan ilaçlardır. Tekrarlayan ampirik sistemik steroid kullanımı muhtemelen hem lenfotoksik etki ile lenfomayı sınırlı da olsa kontrol altında tutmuş hem de tükürük kanallarının tümöral obstrüksiyonu ile ilişkili siyaladenit ataklarını antibiyotiklerle beraber bastırmaya yardımcı olmuştur. Steroide iyi yanıt veren ve tekrarlayan siyaladenit atakları varlığında parotis lenfoması olasılığı akla gelmeli ve kesin tanı için parotidektomi yapılmasından kaçınılmamalıdır.

### Çıkar çakışması beyanı

Yazarlar bu yazının hazırlanması ve yayınlanması aşamasında herhangi bir çıkar çakışması olmadığını beyan etmişlerdir.

### Finansman

Yazarlar bu yazının araştırma ve yazarlık sürecinde herhangi bir finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

### KAYNAKLAR

1. Faur A, Lazăr E, Cornianu M, Dema A, Lăzureanu C, Mureşan A, et al. Primary malignant non-Hodgkin's lymphomas of salivary glands. Rom J Morphol Embryol 2009;50:693-9.
2. Batsakis JG. Primary lymphomas of the major salivary glands. Ann Otol Rhinol Laryngol 1986;95:107-8.
3. Gleeson MJ, Bennett MH, Cawson RA. Lymphomas of salivary glands. Cancer 1986;58:699-704.
4. Kojima M, Shimizu K, Nishikawa M, Tamaki Y, Ito H, Tsukamoto N, et al. Primary salivary gland lymphoma among Japanese: A clinicopathological study of 30 cases. Leuk Lymphoma 2007;48:1793-8.
5. Ellis GL. Lymphoid lesions of salivary glands: malignant and benign. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2007;12:E479-85.
6. Toso A, Aluffi P, Capello D, Conconi A, Gaidano G, Pia F. Clinical and molecular features of mucosa-associated lymphoid tissue (MALT) lymphomas of salivary glands. Head Neck 2009;31:1181-7.
7. Murga Penas EM, Hinz K, Röser K, Copie-Bergman C, Wlodarska I, Marynen P, et al. Translocations t(11;18)(q21;q21) and t(14;18)(q32;q21) are the main chromosomal abnormalities involving MLT/MALT1 in MALT lymphomas. Leukemia 2003;17:2225-9.
8. Roh JL, Huh J, Suh C. Primary non-Hodgkin's lymphomas of the major salivary glands. J Surg Oncol 2008;97:35-9.
9. Schusterman MA, Granick MS, Erickson ER, Newton ED, Hanna DC, Bragdon RW. Lymphoma presenting as a salivary gland mass. Head Neck Surg 1988;10:411-5.
10. Anacak Y, Miller RC, Constantinou N, Mamusa AM, Epelbaum R, Li Y, et al. Primary mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the salivary glands: a multicenter Rare Cancer Network study. Int J Radiat Oncol Biol Phys 2012;82:315-20.
11. Kojima M, Shimizu K, Nishikawa M, Tamaki Y, Ito H, Tsukamoto N, et al. Primary salivary gland lymphoma among Japanese: A clinicopathological study of 30 cases. Leuk Lymphoma 2007;48:1793-8.
12. Erkan AN, Çağıcı CA, Aka-Bolat F, Ozlüoğlu LN. A case of mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the parotid gland. Kulak Burun Bogaz İhtis Derg 2005;14:87-91.
13. Aydın E, Akdoğan MV, Yerli H, Özdemir BH, Demirhan B. Non-Hodgkin's lymphoma of the parotid gland. [Article in Turkish] Kulak Burun Bogaz İhtis Derg 2006;16:183-8.
14. Sarris AH, Papadimitrakopoulou V, Dimopoulos MA, Smith T, Pugh W, Ha CS, et al. Primary parotid lymphoma: the effect of International Prognostic Index on outcome. Leuk Lymphoma 1997;26:49-56.
15. Wenzel C, Fiebiger W, Dieckmann K, Formanek M, Chott A, Raderer M. Extranodal marginal zone B-cell lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue of the head and neck area: high rate of disease recurrence following local therapy. Cancer 2003;97:2236-41.
16. 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.