

UDK 616.316-003.4
COBISS.SR-ID 234143500

ISSN 0350-2899. - God. 42, br. 1 (2017), str. 48-52

MUKOKELA U SUBMANDIBULARNOJ PLJUVAČNOJ ŽLEZDI – PRIKAZ SLUČAJA I LITERATURNI PREGLED

MUCOCELE IN THE SUBMANDIBULAR SALIVARY GLAND - CASE REPORT AND LITERATURE REVIEW

Srbislav Pajić (1), Tanja Boljević (2), Svetlana Antić (3), Milutin Mrvaljević (1), Milena Cojić (4), Jovan Janić (5), Zoran Pešić (6)

(1) CENTAR ZA ZBRINJAVANJE URGENTNIH STANJA I NEUROTRAUME URGENTNOG CENTRA KSC, (2) KLINIKA ZA OTORINOLARINGOLOGIJU I MAKSILOFACIJALNU HIRURGIJU, KLINIČKI CENTAR CRNE GORE, (3) STOMATOLOŠKI FAKULTET U BEOGRADU, CENTAR ZA RADIOLOŠKU DIJAGNOSTIKU, (4) MEDICINSKI FAKULTET PODGORICA, DOM ZDRAVLJA PODGORICA, (5) MEDICINSKI FAKULTET U NIŠU, (6) MEDICINSKI FAKULTET U NIŠU, KLINIKA ZA MAKSILOFACIJALNU HIRURGIJU

Sažetak: Razvoj i pojava mukokela u pljuvačnim žlezdama je izuzetno retka. One se češće pojavljuju u malim pljuvačnim žlezdama i oralnoj sluznici, dok izuzetno retko u velikim pljuvačnim žlezdama. Dosadašnja saznanja kroz literaturni pregled ukazuju na otkrivena 14 slučaja u submandibularnoj pljuvačnoj žlezdi sa entitetom mukokele. Sam nastanak i razvoj mukokela vezan je etiološki za razne parcijalne opstrukcije ili poremećaje u samim izvodnim kanalima žlezde. Mehanizam nastanka i razvoja mukokela objašnjava se nagomilavanjem ili ekstravazacijom mukusa unutar nje, što histopatološka slika i potvrđuje. Sam tretman mukokela pljuvačnih žlezda zahteva hirurško zbrinjavanje i takav radikalni pristup svodi na minimum stopu recidiva. Kako je ovo izuzetno redak entitet u svojoj pojavnosti i perzistenciji, a i kroz literaturni pregled u malom obimu javljanja, smatrali smo da treba da ukažemo na postojanje ovog retkog oboljenja koje nam se kroz praksu pojavilo. Prikazujemo pacijenta starosti 47. godina sa trajanjem bolesti unazad tri godine, sa povremenim remisijama i konačnim progresivnim rastom mukokele leve submandibularne pljuvačne žlezde, kod koga se, nakon MSCT pregleda i punkcije, pristupilo operativnom tretmanu.

Ključne reči: mukokela, submandibularna pljuvačna žlezda.

Summary: The development and emergence of mucocele in the salivary glands is very rare. They often appear in small salivary glands and oral mucosa, while extremely rarely in major salivary glands. Current knowledge through literature review has indicated 14 detected cases in submandibular salivary gland with a mucocele entity. The occurrence and development of mucocele is related to various etiological partial obstructions or disruptions of single secretory channels of salivary glands. The mechanism of origin and development of mucocele is explained by the accumulation of mucus or extravasation within it, which is confirmed by the histopathological image. The treatment of mucocele salivary gland requires surgical treatment and such a radical approach minimises the rate of recidivism. As this is an extremely rare entity in its incidence and persistence and has been scarcely reported in literature reviews, we thought we should indicate the existence of this rare disease that has occurred in our practice. We present a 47-year-old male patient with mucocele in the left submandibular salivary gland, with the disease duration of three years, with occasional remissions and final progressive growth, who underwent surgical treatment after MSCT examination and aspiration puncture.

Key words: mucocele, submandibular salivary gland

UVOD

Mukokele su benigne cistične lezije koje se obično javljaju u malim pljuvačnim žlezdama i u frontalnom sinusu nakon traume, a u nešto manjem obimu pojavljuju se u ostalim

paranasalnim šupljinama. Donja usna kao predilekciono mesto javljanja mukokela zastupljena je sa oko 60–70%, a mogu se javiti i na podu usta, sa oko 6–15% slučajeva.

Zastupljenost u submandibularnoj pljuvačnoj žlezdi je sporadično i izuzetno retko [1].

Predilekcionni faktori koji uslovljavaju i favorizuju nastanak mukokela su traume ili opstrukcije izvodnog kanala žlezde [2, 3, 5, 6]. Zbrinjavanje nastalih mukokela je isključivo hirurško i predstavlja jedini i siguran način izlječenja sa najmanjom stopom recidiva bolesti [7].

Prikazujemo slučaj 47-godišnjeg muškarca sa mukokelom u submandibularnoj žlezdi, sa leve strane vrata, koji se javio sa znatnom oteklinom.

PRIKAZ SLUČAJA

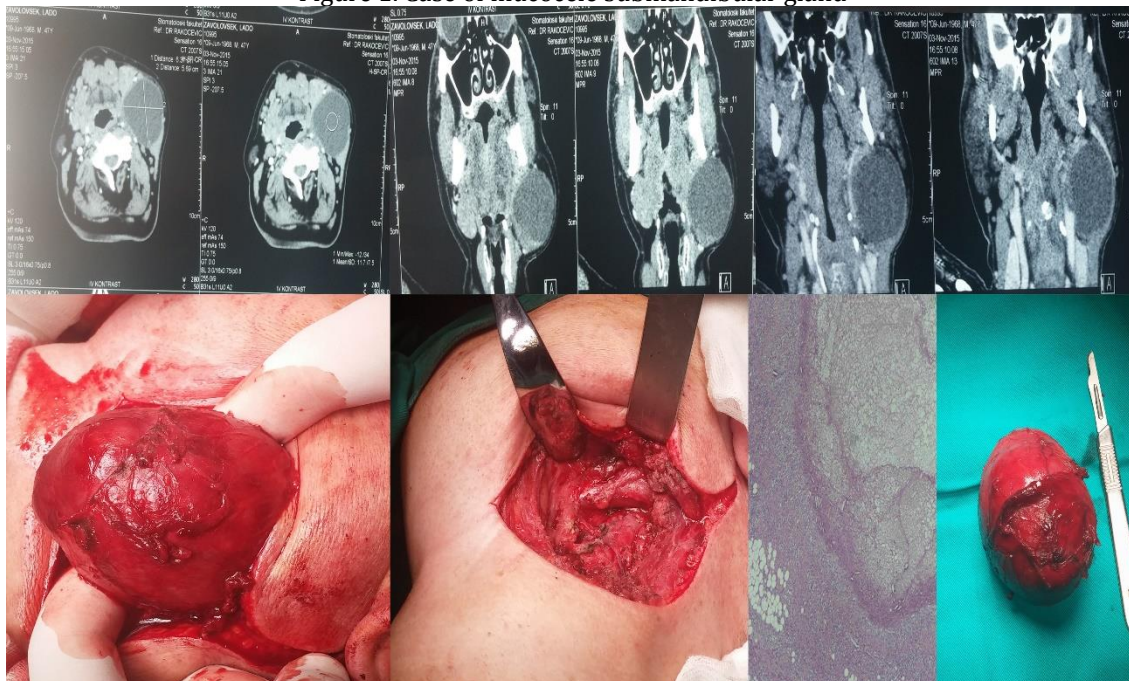
Pacijent Z. V. je starosti 47 godina, sa evolucijom bolesti unazad tri godine, sa povlačenjem simptoma bolesti i remisijama, unazad godinu dana intenzivan rast i perzistencija oteklina vrata sa leve strane. Simptomi su jedino oticanje i bezbolno jednostrano uvećanje na vratu submandibularno levo. Dugogodišnji insulin-zavisan dijabetičar.

Kliničkim pregledom palpira se tumefakt reda veličine 7,0x5,0 centimetara, sa propagacijom submandibularno i retroangularno. Tumefakt čvrst, napet, koža lako pokretne nad njim, čvrsto fiksiran za podlogu (slika 1.). Na vratu se ne palpirlaju limfadenopatije ili druge mase. Intraoralni pregled bez osobnih znaka. U laboratorijskim i biohemijskim analizama sve u referentnim vrednostima.

Kompjuterizovana multislajsna tomografija (MSCT) sa kontrastom pokazala je na vratu promenu reda veličine 6,37x5,69 centimetara cistične, hipodenzne sredine gde se periferno lezija uključuje u submandibularnu pljuvačnu žlezdu u submandibularnoj loži (slika 1.). Uzet punktat iz promene ukazuje na cistični sadržaj, serozan je i žučkaste boje.

Učinjen je operativni zahvat u opštoj endotrahealnoj anesteziji, gde je izvršena evakuacija submandibularne lože; preparat je činila submandibularna žlezda sa mukokelom kao entitetom uz sebe (slika 1.)

Slika1. Prikaz slučaja mukokele submandibularne žlezde.
Figure 1. Case of mucocele submandibular gland



Sam operativni zahvat i postoperativni tok protekao je bez neposrednih komplikacija. Makroskopski pregled uklonjenog sadržaja lože ukazuje na debelozidnu promenu sa brojnim granulacijama po sebi, sa žučkastim seroznim

sadržajem. Pacijent je praćen od prvog postoperativnog meseca do jedne godine, kontrolni pregledi su pokazali uredan nalaz bez dokaza recidiva ili bilo kakvih drugih dodatnih problema.

Tabela 1. Literaturni prikaz i demografske karakteristike 14 objavljenih slučajeva mukokela u submandibularnoj žlezdi.

Table 1. Literature review and demographic characteristics of the 14 published cases of mucocele in the submandibular gland

R. br.	Autori/ Authors	Pol/ Sex	Strost/ Age	Trajanje simptoma/ Duration of symptoms	Strana vrata/ Neck side	Tretman/ Treatment	Pračeno/ Duration of follow up
1	Anastassov et al. [1]	Muško/ male	18 godina/ 18 year	3 meseca/ 3 months	Levo/ left	Evakuacija smg, slg/ evacuation smg, slg	16 meseci/ 16 months
2	Anastassov et al. [1]	Muško/ male	30 godina/ 30 year	10 godina/ 10 years	Desno/ right	Evakuacija smg, slg/ evacuation smg, slg	12 meseci/ 12 months
3	Surkin et al. [4]	Muško/ male	39 godina/ 39 year	6 nedelja/ 6 weeks	Desno/ right	Evakuacija smg/ evacuation smg	Bez evidencije o bolesti/ No records of diseases
4	Choi et al. [6]	Muško/ male	16 meseci/ 16 months	Par dana/ A few days	Obostrano/ both sides	Evakuacija smg, slg/ evacuation smg, slg	24meseca/ 24 monts
5	Van der Goten et al. [7]	Muško/ male	7 godina/ 7 year	3 nedelja/ 3 weeks	Desno/ right	Evakuacija smg/ evacuation smg	Nije ostupno/ Not available
6	Van der Goten et al. [7]	Žensko/ female	18 godina/ 18 year	2 meseca/ 2 monts	Levo/ left	Evakuacija smg, slg/ evacuation smg, slg	Nije dostupno/ Not available
7	Boneu-Bonet et al. [9]	Muško/ male	25 godina/ 25 year	6 meseci/ 6 monts	Desno/ right	Evakuacija smg/ Evacuation smg	Bez evidencije o bolesti/ No records of diseases
8	Hze-Khoong et al. [10]	Muško/ male	21 godina/ 21 year	1 mesec/ 1 months	Desno/ right	Evakuacija smg/ Evacuation smg	Bez evidencije o bolesti/ No records of diseases
9	Okumura et al. [11]	Muško/ male	7 godina/ 7 year	2 godine/ 2 years	Desno/ right	Evakuacija smg, slg/ Evacuation smg, slg	Bez evidencije O bolesti/ No records of diseases
10	Ozturk et al. [12]	Žensko/ female	11 godina/ 11 year	6 meseci/ 6 months	Desno/ right	Evakuacija smg, slg/ evacuation smg, slg	8 meseci / 8 months

11	Ozturk et al. [12]	Muško/ male	38 godina/ 38 year	8 godina/ 8year	Levo/ left	Evakuacija smg/ Evacuation smg	34 meseca/ 34 months
12	Stranc et al. [13]	Muško/ male	29 godina/ 29 year	1 mesec/ 1 months	Desno/ right	Ekscizija mukokele/ Excision mucoccele	Recidiv/ relapse
13	Cholankeril et al. [14]	Muško/ male	25 godina/ 25 year	6 meseci/ 6 monts	Levo/ left	Evakuacija smg/ Evacuation smg	6 eseci/ 6 months
14	Tzu-Hang Chi et al. [15]	Muško/ male	24 godina/ 24 year	12 meseci/ 12 years	Desno/ right	Evakuacija smg/ Evacuation smg	Bez evidencije o bolesti/ No records of diseases

* smg. – submandibularna pljuvačna žlezda, slg. – sublingvalna pljuvačna žlezda.

* smg - submandibular salivary glands, SLG- sublingual salivary glands

DISKUSIJA

Mukokela je benigna, cistična lezija koja se može pojaviti na različitim lokacijama kako oralne sluznice, tako frontalnog sinusa, a najčešće se razvijaju u manjim pljuvačnim žlezdama kao posledica traumatizma ili opstrukcije njihovih izvodnih kanala.

U velikim pljuvačnim žlezdama gotovo da je nema, a u submandibularnoj žlezdi jako retko. Uvidom kroz stručnu literaturu naišli smo na 14 slučajeva pojave mukokele u submandibularnoj pljuvačnoj žlezdi. Prvu objavu ovog entiteta dali su Surkin i sar. 1985. godine. (tabela 1.).

Kroz literaturni pregled uočavamo da je nejednaka distribucija među polovima, te da je veća učestalost u muškaraca u odnosu na žene (12 muškaraca i 2 žene). Zastupljenost mukokele u submandibularnoj žlezdi bila je u rasponu od 16 meseci do 39 godina starosti, srednji dobni uzrast 21 godina. Opređeljujuća strana pojavljivanja lezije je desna strana, u 9 bolesnika, na levoj strani u 4 pacijenata i jedan pacijent je imao bilateralne lezije.

Naš pacijent je imao levostrano pozicioniranu mukokelu nastalu opstrukcijom izvodnog kanala žlezde što zaključujemo na osnovu histopatološkog pregleda preparata odstranjene lezije.

Sam histopatološki preparat ciste nam ukazuje na mucinozni sadržaj pokriven granulacijama hematoksilin eozin mrlja, x40. Sadržaj ciste je sluz sa zidnom oblogom od epitela pokrivenom granulacijama [3].

Mehanizam razvoja mukokele može biti parcijalna opstrukcija kanala pljuvačne žlezde, te samim tim nastaje njeno uvećavanje nagomilavanjem sadržaja i ekstravazacijom unutar same ciste [4]. Pojava mukokela je češća u podmaklim godinama, a obično ređa među mlađom populacijom [5].

Klinička simptomatologija mukokela u submandibularnoj žlezdi javlja se kao bezbolni tumefakt, spororastuća masa u submandibularnom predelu. Obično se manifestuje kao meka, dobro ograničena i mobilna masa [6].

Diferencijalno dijagnostički u obzir mogu doći kongenitalne lezije koje potiču od škržnih lukova, poput kongenitalnih cista, dermoidne ciste, cistični higrom i tireoglosalne ciste [7]. Treba razmišljati i u pravcu stečenih lezija tipa ranula, apscesi, cistična degeneracija tumora.

Suverena dijagnostička procedura u dijagnostikovanju ovog entiteta je svakako MDCT koji nam pruža dobru vizualizaciju svih okolnih struktura sa postojećom promenom. Primena punkcije ima svoje opravdanje radi citološke dijagnoze. Stopa senzitivnosti ove metode ide od 90 do 100%, a lažno pozitivni rezultat je zastupljen sa vrednošću za cervikalne ciste 50% [8]. Magnetna rezonanca (MR) ima svoje mesto u dijagnostikovanju i važna je za određivanje precizne lokalizacije lezije i omogućava nam da se diferencijalno dijagnostički odredimo da li se radi o benignoj ili malignoj leziji.

Hirurško uklanjanje lezije se smatra zlatnim standardom u evaluaciji mukokele u submandibularnoj žlezdi, jer otklanja mogućnost pojave recidiva. Stav je da kada se ovaj entitet pojavi u sublingvalnoj žlezdi da se učini cistektomija ili ubrizgavanje sklerozantnih sredstava ili incizija i drenaža, ili samo ekcizija mukokele da bi se sačuvala sublingvalna pljuvačna žlezda, a neki pristupaju marsupijalizaciji ciste [1, 9].

ZAKLJUČAK

Iako su mukokele retke benigne lezije koje se sporadično javljaju u submandibularnim pljuvačnim žlezdama, uvek ih treba imati na umu u diferencijalnom dijagnostičkom zaključivanju i uspostavljanju dijagnoze kada se susrećemo sa značajnim oteklinama vrata, naročito ukoliko anamnestički podaci dobijeni od pacijenata idu u pravcu simptomatologije o bezbolnoj, spororastućoj i dugovremenskoj perzistirajućoj promeni u submandibularnom predelu, bez znakova inflamacija i temperature.

Hirurški tretman ovih lezija je pravi i jedini izbor u njihovoj eradikaciji.

REFERENCE

- Anastassow GE, Haiavy J, Solodnik P, Lee H, Lumerman H. Submandibular gland mucocele: diagnosis and management. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2000; 89: 159-163.
- Yamasoba T, Tayama N, Syoji M, Fukuta M. Clinicostatistical study of lower lip mucoceles. *Head Neck* 1990; 12: 316-320.
- Baurmash HD. Mucoceles and ranulas. *J Oral Maxillofac Surg.* 2003; 61: 369-378.
- Surkin M, Remsen K, Lawson W, Som P, Biller HF. A mucocele of the submandibular gland. *Arch Otolaryngol* 1985; 111: 623-625.
- Nico MM, Park JH, Lourenco SV. Mucocele in pediatric patients: analysis of 36 children. *Pediatr Dermatol* 2008; 25: 308-311.
- Choi HJ, Kim SG, Kim JD, Kim JH, Kim SM. A case of bilateral submandibular gland mucoceles in a 16-month-old child. *Korean J Pediatr* 2012; 55: 215-218.
- Van der Goten A, Hermans R, Smet MH, Baert AL. Submandibular gland mucocele of the extravasation type. Report of two cases. *Pediatr Radiol* 1995; 25: 366-368.
- Gourin CG, Johnson JT. Incidence of unsuspected metastases in lateral cervical cysts. *Laryngoscope* 2000; 110: 1637-1641.
- Boneu-Bonet F, Vidal-Homs E, Maizcurrana- Tornil A, González-Lagunas J. Submaxillary gland mucocele: presentation of a case. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2005; 10: 180-184.
- Hze-Khoong EP, Xu L, Shen S, Yin X, Wang L, Zhang C. Submandibular gland mucocele associated with a mixed ranula. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2012; 113: e6-e9.
- Okumura K, Inui M, Nakase M, Nakamura S, Hiramoto K, Tagawa T. A case of submandibular gland mucocele. *J Clin Pediatr Dent.* 2007; 31: 207-209.
- Ozturk K, Yaman H, Arbag H, Koroglu D, Toy H. Submandibular gland mucocele: report of two cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2005; 100: 732-735.
- Stranc MF, Skoracki R. A complication of submandibular intubation in a panfacial fracture patient. *J Craniomaxillofac Surg.* 2001; 29: 174-176.
- Cholankeril JV, Scioscia PA. Post-traumatic sialoceles and mucoceles of the salivary glands. *Clin Imaging* 1993; 17: 41-45.
- Tzu-Hang Chi, Rong-Feng Chen, Chien-Han Yuan, Shang-Tao Chien. Submandibular gland mucocele: a case report and literature review. *Int J. Clin. Exp. Med.* 2017; 10 (2): 386-83.