

PRIKAZ RIJETKOG SLUČAJA LEJOMIOMA GORNJE ČELJUSTI U DJETETA

ŽELJKO ORIHOVAC, IGOR BLIVAJS i SINIŠA VARGA

Sveučilište u Zagrebu, Medicinski i Stomatološki fakultet, Klinička bolnica Dubrava, Klinika za kirurgiju lica, čeljusti i usta, Zagreb, Hrvatska

Lejomiom je benigna novotvorina glatkog mišićnog tkiva. Vrlo rijetko se javlja u području gornjeg aerodigestivnog trakta. Posebno rijetko se javlja u području usne šupljine i sluznice koja pokriva obje čeljusti. Češće se javlja u području kože, reproduktivnih organa (maternica) i gastrointestinalnom traktu (jednjak). Iznimno rijetko se javlja u dječjoj dobi. U literaturi je opisano da se manje od 2,7 % slučajeva lejomioma glave i vrata javlja u usnoj šupljini. Lejomiomi glave i vrata razvijaju se iz glatkih mišića krvnih žila i većina može biti kategorizirana kao solidni lejomiomi i vaskularni lejomiomi. Gotovo 75 % opisanih slučajeva lejomioma usne šupljine pripada skupini tzv. vaskularnih lejomioma, dok su, iako rjeđe, opisane i tzv. epiteloidne varijante lejomioma (lejomioblastomi). Iako se, kako je ranije navedeno, vrlo rijetko javljaju u dječjoj dobi, najčešća sjela lejomioma dječje dobi su urogenitalni organi, probavni trakt, koža i duboka meka tkiva.

Cljučne riječi: lejomiom, tumori glave i vrata dječje dobi

Adresa za dopisivanje: Doc. dr. sc. Željko Orihovac, dr. med.
Klinika za kirurgiju lica, čeljusti i usta
Klinička bolnica Dubrava
Avenija Gojka Šuška 6
10 000 Zagreb, Hrvatska
E-pošta: zorihov@kdb.hr

UVOD

Predstavljamo vrlo rijedak slučaj intraoralnog lejomioma maksile u pedijatrijske pacijentice. U Medline bazi podataka postoji samo 10 opisanih slučajeva intraoralnog lejomioma u pedijatrijskoj populaciji od kojih ni jedan nije sličan našem slučaju s obzirom na lokalizaciju, stadij i potreban opseg liječenja. Slučaj je dodatno interesantan kada se u obzir uzmu okolnosti pod kojima je pacijentica liječena u našoj državi.

Tumori glatkog mišićnog tkiva se mogu javiti bilo gdje u tijelu. Visoka incidencija ovih tumora je u gastrointestinalnom traktu, ali se vrlo rijetko javljaju u usnoj šupljini, ždrijelu i gornjem aerodigestivnom traktu. Razlog niske incidencije u navedenim regijama vjerojatno leži u maloj zastupljenosti tkiva s glatkim mišićjem (1-3).

Lejomiomi su benigni tumori glatkog mišićnog tkiva (1). U preglednom članku iz 1975., Farman je od uključenih 7748 lejomioma opisao da se 95 % svih slučajeva javlja u ženskom genitalnom traktu, 3,5 % u koži i 1

% u gastrointestinalnom traktu. Ostatak slučajeva javlja se u raznim dijelovima tijela, uključivo glavu i vrat (2). U pregledu literature iz 1985. Barnes je opisao 257 slučajeva lejomioma glave i vrata, te je zapazio da se u području glave i vrata najčešće javljaju u cervikalnom jednjaku, koži, potkožnom mekom tkivu, te usnoj šupljini. Opisana su samo dva slučaja kod kojih je tumor u području maksile ili mandibule (3-5,7). Lejomiomi su opisani u svim dobnim skupinama, ali je najveća incidencija u dobi od 40 do 60 godina. Nema bitnih razlika s obzirom na spol (1-3).

PRIKAZ BOLESNICE

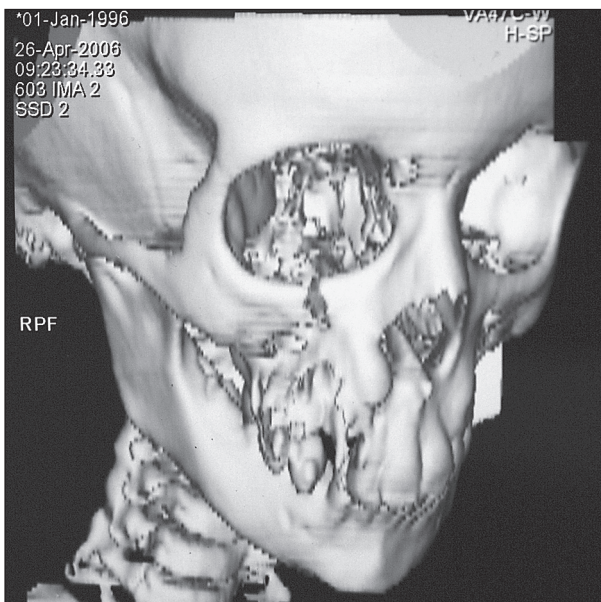
U travnju 2006. godine se kod desetogodišnje djevojčice pojavio bezbolni intraoralni otok (sl. 1). U rodnom gradu bolesnice (Bagdad) započeta je inicijalna obrada, te je učinjen MSCT kosti lica koji je ukazivao na cistično multilokularno razrjeđenje kosti s destrukcijom okolnih koštanih rubova i dislokacijom zuba prema maksilarnom sinusu (sl. 2, sl. 3).



Slika 1.

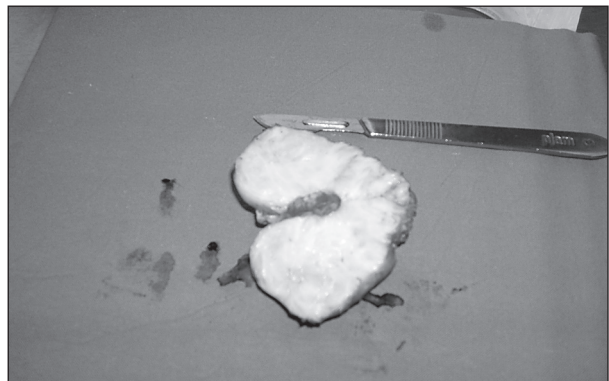


Slika 2.



Slika 3.

Patohistološka analiza bioptata pokazivala je solidnu, sivo-žutu masu, s predominirajuće kolageniziranom fibroznom stromom te rasutim trabekulama kosti po tipu fibrozne displazije. Analiza nije pokazivala znakova malignosti. Postavljena je radna dijagnoza monostotske fibrozne displazije. Pacijentica je bila upućena lokalnom maksilofacijalnom kirurgu koji je na osnovi nalaza do tada učinjene obrade preporučio modelaciju tumora. Jedini tada živući član obitelji pisao je Veleposlanstvu SAD u Bagdadu s molbom da se djevojčici omogući liječenje u inozemstvu, jer potrebno liječenje tada u Bagdadu nije bilo dostupno. Diplomatskim kanalima i u Ministarstvu vanjskih poslova RH organizirano je liječenje u Klinici za dječje bolesti Zagreb na humanitarnoj osnovi.

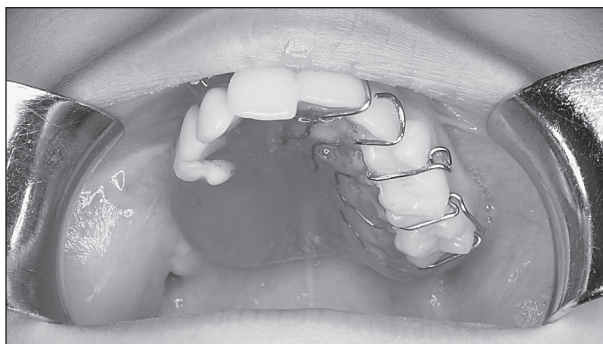


Slika 4.

Nakon dolaska u Zagreb u lipnju 2006. revidirana je patohistološka analiza te je postavljena dijagnoza benignog mezenhimnog tumora. Postavljena je indikacija za kirurško liječenje. U srpnju 2006. godine učinjena je parcijalna desnostana maksilektomija transoralnim pristupom (sl. 4). Tumor je odstranjen u cijelosti (sl. 5). Defekt reseciranog dijela desne strane gornje čeljusti zatvoren je resekcijском protezom (sl. 6). Poslijeoperacijski tijek je protekao je bez komplikacija, te je djevojčica u dobrom općem stanju otpuštena na kućnu njegu (sl. 7).



Slika 5.



Slika 6.



Slika 7.

RASPRAVA

Nepredvidiva histološka slika tumora glatkih mišića i nedostatak jasnih kriterija u razlikovanju malignih od benignih tumora poznat je problem u patologiji (1,2,4). U preglednom članku objavljenom od Farmana 1975. godine samo 5 od opisanih 7748 slučajeva tumora glatkih mišića ili 0,065 % pojavilo se u području usne šupljine, što intraoralni lejomiom čini izrazito rijetkim entitetom (2). Sačinjava 0,42 % svih mekotkivnih intraoralnih lezija (2,3,6,8). Lejomioni su tumori odrasle dobi s najvišom incidencijom u populaciji od

40 do 59 godina (1,2,10,11). Zahvaćanje gornje čeljusti, kao što je prikazano u našem slučaju, a što je indiciralo radikalnu operaciju u smislu parcijalne maksilektomije, ekstremno je rijetko (1,7,11,12). Konkretni slučaj poput našeg, s obzirom na sjelo tumora, stadij tumora, opseg operacije i dob pacijentice do sada nije objavljen.

Kliničke manifestacije lejomiona variraju ovisno o veličini tumora i lokalizaciji, a uključuju asimptomsku masu, nazalnu opstrukciju, disfagiju, promjene glasa i trizmus (14). Najčešći subjektivni simptom intraoralnih lezija je bol pri žvakanju (13,14). Metoda liječenja je resekcija tumora u cijelosti sa zadovoljavajućim rubom zdravog tkiva. Recidivi su rijetkost.

ZAKLJUČAK

Iskustvo koje smo stekli s desetogodišnjom pacijenticom zanimljivo je utoliko što podsjeća na uvijek prisutne probleme u postavljanju točne i egzaktno dijagnoze te s tim povezane indikacije za tip i opseg operacije. Nadalje, konkretni slučaj dodatno je zanimljiv zbog uvjeta u kojima je djevojčica liječena u našoj državi koji svakako ocrtavaju humanu crtu našeg društva. Uz navedeno, djevojčicu su u Klinici za dječje bolesti u Zagrebu operirali maksilofacijalni kirurzi iz druge bolnice u kojoj radi i specijalist protetike koji je napravio adekvatnu resekcijsku protezu. Glavni nedostatak koji se mora navesti je nepoznati tijek praćenja, te daljnji tijek rasta i razvoja lica kod djevojčice. Naime, djevojčica je 6 tjedana nakon kirurškog liječenja napustila Hrvatsku, te daljnji kontakt, a time i kontrolni pregledi nisu bili mogući.

L I T E R A T U R A

1. Barnes L, ed. Surgical Pathology of the head and neck. New York: Marcel Dekker, 2001, 889-979.
2. Farman AG, Benign smooth muscle tumors. S Afr Med J 1975; 49: 1333-40.
3. Veeresh M, Sudhakara M, Girish G, Naik C. Leiomyoma: A rare tumor in the head and neck and oral cavity: Report of 3 cases with review. J Oral Maxillofac Pathol 2013; 17(2): 281-87.
4. Baden E, Doyle JL, Lederman DA Leiomyoma of the oral cavity: A light microscopic and immunohistochemical study with review of the literature from 1884 to 1992. Eur J Cancer Br Oral Oncol 1994; 30B(1): 1-7.
5. Luaces-Rey R, Lorenzo-Franco F, Gomez-Olivera G, Patino-Seijas B. Oral leiomyoma in retromolar trigone. A case report. Med Oral Pathol Oral Cir Bucal 2007; 12: 53-5.

6. Sharma A, Goyal G, Panwar SS, Nangia R. Leiomyoma of oral cavity: A review. *Ann Dental Specialty* 2015; 3(4): 103-4.

7. Dutt K C, Bindra S, Awana M, Talwar M, Lehl G. Intraosseous Leiomyoma of the Mandible: A case report of the rare entity and review of literature. *J Maxillofac Oral Surg* 2017; 16(2): 145-51.

8. Montague LJ, Fitzpatrick SG, Islam NM, Cohen DM, Bhattacharyya I. Extensively ossifying oral leiomyoma: A rare histologic finding. *Head Neck Pathol* 2014; 8(3): 311-16.

9. Reddy BVR, Shoba Rani B, Anuradha CH, Chndrasekhar P, Shamala R, Lingamaneni KP. Leiomyoma of the mandible in a child. *J Oral Maxillofac Pathol* 2011; 15 (1): 101-4.

10. Sfasciotti G, Marini R, Tonoli F, Cristalli MP. Leiomyoma of oral cavity: care report and literature review. *Ann Stomatol* 2011; 2(1-2): 9-12.

11. Alvarez E, Laberry M, Ardilla C. Multiple oral leiomyomas in an infant: A rare case, case reports in dentistry. 2012, p. 3.

12. Gaitan Cepeda LA, Quezada Rivera D, Tenorio Rocha F, Leyva Huerta ER, Mendez Sánchez ER. Vascular leiomyoma of the oral cavity. Clinical, histopathological and immunohistochemical characteristics. Presentation of five cases and review of the literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2008; 13(8): E483-88.

13. Nonaka C F, Pereira K M, Miguel M C. Oral vascular leiomyoma with extensive calcification areas. *Rev Bras Otorrinolaringol (Engl Ed)* 2010; 76(4): 539.

14. Kaur G, Gondal R. Oral leiomyoma. *J Oral Maxillofac Pathol* 2011; 15(3): 361-2.

SUMMARY

A RARE CASE OF MAXILLARY LEIOMYOMA IN A PEDIATRIC PATIENT

Ž. ORIOVAC, I. BLIVAJŠ and S. VARGA

University of Zagreb, School of Medicine, School of Dentistry, Dubrava University Hospital, Department of Maxillofacial Surgery, Zagreb, Croatia

Leiomyoma is a benign neoplasm of smooth muscle that is rare in the upper respiratory and digestive tract, extremely rare in the oral cavity affecting the maxilla, being far more common in the genitalia, skin and gastrointestinal tract. It rarely affects children. Fewer than 2.7% of human cases occur in the mouth. Leiomyomas of the head and neck region most likely develop from vascular smooth muscle tissue and most may be categorized as solid leiomyoma (deep soft tissue leiomyoma) and vascular leiomyoma (angiomyoma, angioleiomyoma). Almost 75% of the oral cases reported are of vascular nature. Epithelioid leiomyoma (leiomyoblastoma), a rare third type, has also been reported. Although rarely occurring in children, the most common occurrences reported are genitourinary and gastrointestinal, sometimes in soft tissues.

Key words: leiomyoma, maxilla, surgery