

УДК 616-006.325+616-036.87+616-071+616-08+616.314

І.Д. Костишин<sup>1</sup>, Р.А. Левандовський<sup>2</sup>, Г.А. Гірна<sup>1</sup>, І.І. Репетило<sup>1</sup>, В.В. Бойко<sup>3</sup>

## Плеоморфна аденома малої слинної залози твердого піднебіння. Клінічні спостереження

<sup>1</sup>Івано-Франківський національний медичний університет, кафедра онкології<sup>2</sup>Буковинський державний медичний університет, кафедра ортопедичної стоматології<sup>3</sup>Комунальний заклад «Прикарпатський клінічний онкологічний центр»

**Резюме.** У статті наведено дані про поширеність, особливості клініки, діагностики та лікування плеоморфної аденоми малих слинних залоз твердого піднебіння й початкового етапу ортопедичної реабілітації хворих. Основними методами діагностики аденоми піднебіння є цитологічний, гістологічний, комп'ютерна та магнітно-резонансна томографія. Для зменшення кількості рецидивів аденоми запропоновано комбіноване лікування (передопераційний курс дистанційної гама-терапії за інтенсивною програмою з наступним хірургічним втручанням).

**Ключові слова:** малі слинні залози, плеоморфна аденома, рецидив, лікування, ортопедична реабілітація.

### Актуальність

Пухлини слинних залоз є рідкісними і становлять 2–3 % від усіх новоутворень ділянки голови та шиї. Розвиваються вони у віковій групі від 30 до 70-ти років [19]. Дані пухлини частіше зустрічаються в жінок, ніж у чоловіків (співвідношення 1,9:1). 80 % пухлин є доброякісними. Серед доброякісних новоутворень слинних залоз найпоширенішою є плеоморфна аденома – 70–80 % [12, 16, 17]. Дана пухлина також має назву «змішана пухлина слинних залоз» у зв'язку з гістологічною картиною плеоморфізму (пухлина складається із залозистого епітелію слинної залози та міоепітеліальних клітин) [14].

Пухлини малих слинних залоз становлять 20–30 % [10] серед доброякісних пухлин слинних залоз. Плеоморфні аденоми, асоційовані з малими слинними залозами, мають певну тенденцію до малигнізації – 5 %, і вважається, що чим менше слинна залоза уражена, тим вище ризик малигнізації. Рецидивування цієї пухлини зустрічається у 3 % хворих [21]. Найбільш частою локалізацією плеоморфної аденоми малих слинних залоз є піднебіння – 42,63% на межі твердого та м'якого піднебіння [15]. Тверде піднебіння анатомічно відрізняється від оточуючих тканин ротової порожнини тим, що в його межах відсутній підслизовий шар, а в задньо-латеральних відділах топографічно знаходяться великий і малий піднебінні отвори, що сприяє більш швидкому проростанню пухлини власне у прилеглу кістку [1]. Плеоморфна аденома має тонку псевдокапсулу, яка насправді не є суцільною й дозволяє мікроростам пухлини інвазувати в навколишні тканини [4, 8]. Такий її поліциклічний ріст створює високий ризик рецидиву після хірургічного лікування [10, 18, 20]. При досягненні пухлини великих розмірів вона стає нерухомою й руйнує тверде піднебіння із проростанням у гайморову пазуху та порожнину носа [13, 19].

Наводимо два клінічних випадки неповного обстеження й лікування аденоми на догоспітальному етапі.

### Клінічне спостереження 1

Хвора М., 72 роки, звернулася в амбулаторне відділення Івано-Франківського ООД зі скаргами на ускладнене дихання, порушення акту ковтання й мови. Вважає себе хворою 35 років. Первинна пухлина локалізувалась на слизовій оболонці твердого піднебіння і при зверненні в лікувальний заклад мала розміри до 1,5 см. Протягом усього часу захворювання проведено п'ять операцій з

видаленням плеоморфної аденоми слизової оболонки твердого піднебіння. Рецидиви спостерігались кожних 3–4 роки. У день звернення спостерігалась така клінічна картина: пухлина верхньої щелепи із 3-ма горбистими розростаннями в м'які тканини правої щоки, фронтальний відділ альвеолярного паростку верхньої щелепи й ротоглотку (рис. 1, 2). Унаслідок гігантських розмірів пухлини наявне незмикання щелеп до 4 см з постійною слинотечею. Провести непряму фаринголарингоскопію неможливо через значне зміщення органів ротоглотки. Регіонарні лімфатичні вузли шиї не збільшені.

Показники загального аналізу крові в межах норми. Результат патогістологічного дослідження трьох ділянок – плеоморфна аденома. Рентгенографія кісток лицевого скелету – деструкція фронто-латеральної частини верхньої щелепи справа із проростанням пухлини у праву гайморову пазуху, порожнину носа і дно правої орбіти. Супутні захворювання – хронічний бронхіт. Консиліумом лікарів було прийнято рішення: хвора оперативному радикальному лікуванню не підлягає.

Планово проведено операцію – нижню трахеостомию. Із труднощами введено орогастральний зонд. Від запропонованого паліативного курсу дистанційної гама-терапії категорично відмовилась. У задовільному стані виписана додому під спостереження профільних спеціалістів.

Високий відсоток рецидивів і ускладнень після видалення аденоми піднебіння послужили причиною розробки як більш радикальної техніки хірургічного втручання, так і пошуку різних способів комбінованого лікування [2, 3, 5, 9, 11].



Рис. 1 Хв. М. вигляд збоку.



Рис. 2. Хв. М. вигляд спереду.



Рис. 3. Хв. Г., межі пухлини.



Рис. 4. Пухлина в сагітальній проекції.



Рис. 5. Пухлина в аксіальній проекції.

### Клінічне спостереження 2

Хвора Г. 48 років поступила у відділ «Пухлин голови та ший» Прикарпатського клінічного онкологічного центру зі скаргами на наявність утвору на твердому піднебінні зліва й порушення вимови. З анамнезу хвороби відомо, що хворіє протягом 16-ти років. Дев'ять років тому прооперована із приводу аденоми малої слинної залози піднебіння в іншому лікувальному закладі. Через три роки після операції – рецидив, утвір збільшувався в розмірах поступово, по медичну допомогу не зверталася. При локальному огляді: куполоподібний утвір піднебіння зліва розміром  $4,5 \times 4,0$  см від 24-го зуба до заднього краю твердого піднебіння (лінія А) у сагітальному напрямку та поширюється на 1,0 см за серединний шов піднебіння протилежної сторони. Слизова над ним інтактна. Утвір при пальпації щільний, гладкий, нерухомий, з чітко окресленими краями, без ознак флуктуації, помірно реагує при пальпації (рис. 3).

Хвора проконсультована суміжними спеціалістами, терапевтично здорова. З даних магнітно-резонансної томографії тканин обличчя: у ділянці локалізації пухлини лівої половини твердого піднебіння наявна деструкція піднебінної кістки і дна носа (рис. 4, 5).

Інцизійна біопсія виявила ознаки плеоморфної аденоми. Встановлено: «Рецидив плеоморфної аденоми малої слинної залози твердого піднебіння зліва».

Ураховуючи рецидив захворювання й результати МРТ (проростання через піднебінну кістку в гайморову пазуху й порожнину носа зліва) визначено план лікування: передопераційний курс дистанційної гамма-терапії за інтенсивною програмою на ділянку РВД 4 Гр, СВД 20 Гр. Другий етап (на 5-й день опромінення) – операція: перев'язка лівої зовнішньої сонної артерії, після чого часткова резекція верхньої лівої щелепи зі замощенням дефекту верхньої щелепи за допомогою попередньо виготовленої резекційної апаратури з піднятим і потовщеним вестибулярним бортом (рис. 6, 7), яку виготовили за відбитками (рис. 8, 9), отриманими до операції з верхньої та нижньої щелеп [6].

Протокол операції. Під інтубаційним наркозом після асептичної обробки операційного поля видалено 23-й зуб. Відступивши від пухлини на 0,5 см, електроножем проведено

демаркаційну лінію навколо пухлини піднебіння, починаючи з лунки 23 зуба, перейшовши на 1/2 протилежної сторони піднебіння й закінчено лінію розрізу за 28-м зубом. Проведено розріз слизової перехідної складки верхньої щелепи між лункою 23-го зуба й задньою поверхнею горба. Відпрепаровано й відведено доверху слизово-окісний клапоть. Фісурним бором відтрепано передню стінку гайморової пазухи від 23 до 28-го зуба. Подальша резекція альвеолярного паростка і твердого піднебіння по попередньо зазначеній демаркаційній лінії. Електроножем продовжено висічення фрагменту щелепи в межах лінії А й видалено його з пухлиною одним блоком на глибину – нижня 1/3 лівої верхньої щелепи та носа (рис. 10). Гемостаз по ходу рани. Дефект верхньої щелепи виповнено марлевою турундою просоченою маззю «Левомеколь» та адаптовано тимчасову резекційну апаратуру (рис. 11). Установлено назогастральний зонд.

На рис. 12, 13, 14 представлено макропрепарат.

Патогістологічний висновок № 22722-4 – плеоморфна аденома слинної залози з інвазією у верхню щелепу.

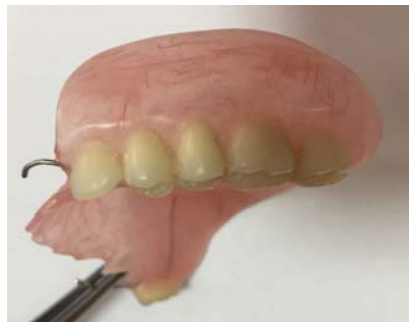


Рис. 6. Тимчасова резекційна апаратура.



Рис. 7. Тимчасова резекційна апаратура.



Рис. 8. Планування ортопедичної апаратури. На гіпсовій моделі позначено межі пухлини.



Рис. 9. Позначено межі запланованої резекції альвеолярного паростка верхньої щелепи.





Рис. 10. Дефект верхньої щелепи зліва.



Рис. 11. Заміщення дефекту тимчасовою резекційною апаратурою.

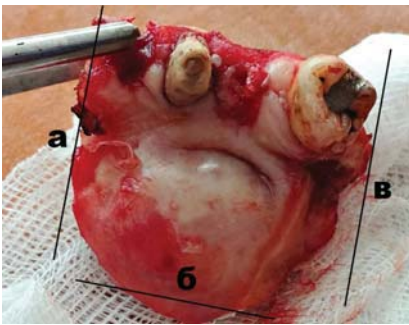


Рис. 12. Макропрепарат. Верхня щелепа зліва розміром 5,5×6,5 см з пухлиною. Межі макропрепарату: передня (а) – рівень 23 зуба, ліва половина дна носа; медіальна (б) – 1/2 твердого піднебіння протилежної сторони; задньо-дистальна (в) – альвеолярний паросток із горбом верхньої щелепи, лінія А. Глибина видалення – нижня стінка верхньо-щелепної пазухи і дно порожнини носа зліва (нижня 1/3 лівої верхньої щелепи й носа).

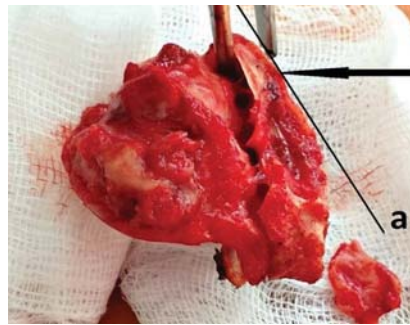


Рис. 13. Макропрепарат зі сторони його передньої межі (а) – пухлина від'єднала від верхньої поверхні твердого піднебіння по задньому краю.

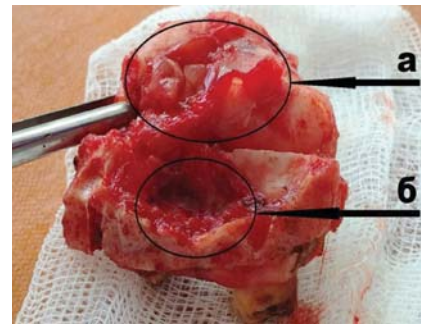


Рис. 14. Пухлина зі сторони гайморової пазухи і дна носа. а – відсепарована й відкинута пухлина дна гайморової пазухи й носа; б – дно гайморової пазухи, представлене пухлинним ростом і деструкцією кістки твердого піднебіння і дна носа.

Післяопераційний період протікав без ускладнень, на 9-й день після операції виписана під спостереження стоматолога.

У подальшому, після закінчення секвестрації (рис. 15) і дозрівання слизової оболонки протезного ложа хворій (рис. 16) буде виготовлено почергово резекційну апаратуру різного призначення для кінцевої реабілітації протягом 1,5–2-х років.

На наше переконання, хворі з подібними набутими дефектами повинні виписуватись в обов'язковому порядку з наявністю в порожнині рота тимчасової замісної апаратури, яка сприяє не тільки покращенню мови, акту ковтання, а й підтримці психологічної складової цілісності особистості, що сприятливо позначається на адаптації в родині, серед знайомих і в суспільстві загалом [7].

### Висновки

1. Особливості анатомічної будови слизової оболонки твердого піднебіння (відсутність підслизового шару), наявність великого й малого піднебінних отворів і структури капсули поліморфної аденоми (псевдокапсула) створюють умови для швидкого проростання



Рис. 15. Стан протезного ложа через три місяці після операції.



Рис. 16. Зовнішній вигляд хворой через три місяці після оперативного втручання та тимчасової ортопедичної реабілітації.

- аденоми в кісткову структуру твердого піднебіння й, відповідно, часті рецидиви.
2. При розростанні пухлини до значних розмірів вона проростає в гайморову пазуху, порожнину носа й ротоглотку, порушуючи акт ковтання та дихання.
3. Обов'язковими методами обстеження хворих на аденому слизової оболонки твердого піднебіння є цитологічний метод дослідження (пункція) й гістологічний (біопсія). Для оцінки глибини проростання пухлини у навколишні структури, визначення обсягу операції та оперативного доступу на твердому

- піднебінні та яснах обов'язковим та основним методом дослідження є комп'ютерна та магнітно-резонансна томографія.
- Єдиний метод лікування плеоморфних аденом слизової твердої піднебіння – це широке хірургічне висічення з частиною навколишніх здорових тканин з наступним заміщенням дефекту ортопедичною апаратурою. Перед- чи післяопераційна променева терапія знижує ризик виникнення рецидивів пухлин.
  - Оцінюючи наші спостереження та порівнюючи їх з даними літератури, слід наголосити на важливості вироблення правильної тактики діагностики й лікування хворих з пухлинами малих слинних залоз твердої піднебіння при їх первинному зверненні у клініку. При цьому обов'язковими є консультація або участь в обстеженні й операції кваліфікованого онколога, фахівця в галузі щелепно-лицьової хірургії та стоматолога-ортопеда.

## ЛІТЕРАТУРА

- Анатомія людини: у 3 т. (видання 3-є). Том 2 / А.С. Головацький, В.Г. Черкасов, М.Р. Сапін, А.І. Парахін. – Вінниця: Нова книга, 2015. – С. 13–14.
- Дарьялова С.Л. Принципы лучевого и комбинированного лечения новообразований околоушной слюнной железы / С.Л. Дарьялова. – Москва: Медицина, 1972. – 175 с.
- Едемская О.В. Методические аспекты интраоперационной лучевой терапии злокачественных опухолей головы и шеи: Автореф. дис. ... канд. мед. наук: 14.00.19, 14.00.14 / Моск. научно-исслед. онкологич. ин-т. – Москва, 2007. – 21 с.
- Иосава В.О. Материалы к изучению гистогенеза опухолей слюнных желез: Автореф. дис. ... д-ра мед. наук / Тбил. гос. мед. ин-т. – Тбилиси: [б. и.], 1967. – 38 с.
- Костишин І.Д., Вівчаренко Ю.К., Костінський І.Ю., Цибран С.С., Зендровська Л.М. Спосіб комбінованого лікування хворих з місцево поширеним раком гортані. Український інститут промислової власності. Патент на винахід № 74001; опубл. 17.10.2005 р.
- Левандовський Р.А. Концепція перманентної ортопедичної реабілітації онкологічних хворих після резекції верхньої щелепи / Р.А. Левандовський // Новини стоматології. – 2013. – № 2. – С. 68–72.
- Левандовський Р.А. Тривожно-депресивні розлади в пацієнтів з дефектами щелепно-лицьової ділянки / Р.А. Левандовський // Архів клінічної медицини. – 2013. – № 2. – С. 47–51.
- Матякин Е.Г. Клинические аспекты рецидивных опухолей слюнных желез / Е.Г. Матякин // Вестн. РОНЦ РАМН. – 2009. – Т. 20. – № 2. – С. 37.
- Пачес А.И. Опухоли слюнных желез / А.И. Пачес, Т.Д. Таболиновская. – Москва: Практическая медицина, 2009. – 469 с.
- Daniels J.S. Pleomorphic adenoma of the palate in children and adolescents: A report of 2 cases and review of the literature / J.S. Daniels, I. Ali, I.M. Al Bakri, B. Sumangala // J. Oral Maxillofac. Surg. – 2007. – № 65. – P. 541–549.
- Glas A. Expression of estrogen receptor, progesterone receptor in patients with recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland / A. Glas, H. Holema, R. Nap // Cancer. – 2002. – Vol. 94. – P. 2211–2216.
- Harriet C. Thoeny Imaging of salivary gland tumors / C. Thoeny Harriet // Cancer Imaging. – 2007. – № 7 (1). – P. 52–62.
- Jagdeep S Thakur. Pleomorphic adenoma of minor salivary gland with therapeutic misadventure: a rare case report / S. Thakur Jagdeep, K. Mohindroo Narinder et al. // BMC Ear, Nose and Throat Disord. – 2010. – № 10 (2). – doi: 10.1186/1472-6815-10-2.
- Mansur Rahnama. Pleomorphic adenoma of the palate: a case report and review of the literature / Rahnama Mansur, Orzedala-Koszul Urszula et al. // Contemp. Oncol. (Pozn.). – 2013. – № 17. – P. 103–106.
- Moghe S. Pleomorphic adenoma of the palate: Report of a case / S. Moghe, A.K. Pillai, S. Prabhu et al. // International Journal of Scientific Study. – 2014. – № 2. – P. 54–56.
- Moonis G. Imaging characteristics of recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland / G. Moonis, P. Patel, Y. Koshkareva et al. // AJNR Am. J. Neuroradiol. – 2007. – № 28 (8). – P. 1532–1536.
- Motoori K. Pleomorphic adenoma of the nasal septum: MR features / K. Motoori, H. Takano, K. Nakano et al. // AJNR Am. J. Neuroradiol. – 2000. – № 21 (10). – P. 1948–1950.
- Sharada T. Rajan. Pleomorphic adenoma of a minor salivary gland – Report of a case / T. Rajan Sharada, S. Vandana, N. Malathi et al. // SRJM. – 2015. – № 8. – P. 20–22.
- Shruthi M. Pleomorphic Adenoma of Palate: A Case Report / M. Shruthi, R. Kini, V. Naik, G.Y. Naik, N. Kumar, J. Kumar // Int. J. Adv. Health. – 2015. – № 2 (1). – P. 13–16.
- Watts T.L. Tumors of the hard palate and upper alveolar ridge, Grand Rounds Presentation; The University of Texas Medical Branch (UTMB), Department of Otolaryngology; 2011.
- Wu Y.C. Clinicopathological study of 74 palatal pleomorphic adenomas / Y.C. Wu, Y.P. Wang, S.J. Cheng et al. // Journal of the Formosan Medical Association. – 2016. – № 115. – P. 25–30.

## Плеоморфная аденома малой слюнной железы твердого неба. Клинические наблюдения

*И.Д. Костишин, Р.А. Левандовский, Г.А. Гирна, И.И. Репетило, В.В. Бойко*

**Резюме.** В статье приведены данные о распространенности, особенности клиники, диагностики и лечения плеоморфной аденомы малых слюнных желез твердого неба и начального этапа ортопедической реабилитации больных. Основными методами диагностики аденомы неба являются цитологический, гистологический, компьютерная и магнитно-резонансная томография. Для уменьшения имверности рецидивов аденомы предложено комбинированное лечение (дооперационный курс дистанционной гамма-терапии по интенсивной программе с последующим хирургическим вмешательством).

**Ключевые слова:** малые слюнные железы, плеоморфная аденома, рецидив, лечение, ортопедическая реабилитация.

## Pleomorphic adenoma of minor salivary gland of the hard palate. Clinical observations

*I. Kostyshyn, R. Levandovskiy, G. Girma, I. Repetylo, V. Boyjko*

**Resume.** In the article we provide data on prevalence, clinical features, diagnostics and treatment for minor salivary gland pleomorphic adenoma of the hard palate. Also, the initiating step of the orthopedic rehabilitation is discussed. The main diagnostic methods for pleomorphic adenoma of the palate are cytological and histological examination, computed tomography and magnetic resonance imaging. In order to reduce the adenoma relapse probability, we offer a combination therapy: preoperative course of distant gamma-therapy by the intensive program and the operative treatment afterwards.

**Key words:** minor salivary glands, pleomorphic adenoma, relapse, treatment, orthopedic rehabilitation.

*І.Д. Костишин* – канд. мед. наук,

доцент кафедри онкології Івано-Франківського національного медичного університету.

*Р.А. Левандовський* – д-р мед. наук,

доцент кафедри ортопедичної стоматології Буковинського державного медичного університету.

*Г.А. Гірна* – асистент кафедри онкології Івано-Франківського національного медичного університету.

*І.І. Репетило* – лікар-стоматолог.

*В.В. Бойко* – онкохірург, зав. відділом «Пухлин голови і шиї» комунального закладу «Прикарпатський клінічний онкологічний центр».