

Mięśniaki gładkokomórkowe regionu głowy i szyi

Leiomyomas of the head and neck

MARCIN SZYMAŃSKI^{1/}, PIOTR OLEJARZ^{1/}, JUSTYNA ŚLIWIŃSKA^{2/}, ELŻBIETA KOROBOWICZ^{2/}, KAMAL MORSHED^{1/}

^{1/} Katedra i Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej Uniwersytetu Medycznego w Lublinie

^{2/} Katedra i Zakład Patomorfologii Klinicznej Uniwersytetu Medycznego w Lublinie

Mięśniaki gładkokomórkowe to nowotwory mezenchymalne zbudowane z komórek różnicujących się w kierunku mięśni gładkich. Najczęściej rozwijają się w macicy, rzadziej w przewodzie pokarmowym i skórze, a tylko 1% tych guzów stwierdza się w narządach głowy i szyi. Są nowotworami łagodnymi. Rozpoznanie ustala się na podstawie obrazu histologicznego preparatu tkankowego. W przypadkach niejednoznacznych wymagane jest wykonanie badań immunohistochemicznych.

W pracy przedstawiono przypadki czterech chorych, u których na podstawie obrazu histologicznego preparatu tkankowego rozpoznano guzy o typie mięśniaka gładkokomórkowego. U dwóch chorych, u których guzy zlokalizowane były odpowiednio w trzonie języka oraz poniżej zwieracza dolnego gardła, rozpoznano niezwykle rzadki w narządach głowy i szyi typ nabłonkowy guza. U pozostałych dwóch chorych, u których stwierdzono guz wargi dolnej oraz guz szyi zlokalizowany poniżej kąta żuchwy rozpoznano typ naczyniowy. Omówiono objawy kliniczne, cechy obrazu histologicznego preparatów tkankowych, diagnostykę różnicową oraz leczenie stosowane w tego typu nowotworach.

Słowa kluczowe: *mięśniak gładkokomórkowy, nowotwór głowy i szyi*

Leiomyomas are mesenchymal tumours showing smooth muscle differentiation. They develop most often in the uterus, sometimes in the gastrointestinal tract and skin and only 1% of these tumours occur in the head and neck region. The tumours are benign. They are diagnosed by histological examination, while some vague cases may require immunohistochemical analysis.

Four cases of histology-proven leiomyomas are reported. Two of the patients tumours located in the tongue and in the throat just below the lower sphincter presented with epithelioid type of tumour which is extremely rare in the organs of head and neck. The tumour of the lower lip and the neck tumour located below the inferior border of the mandibular angle detected in the other two patients were of the vascular type. Clinical symptoms, histological characteristics, differential diagnosis and the treatment of that type of neoplasms have been reported.

Key words: *leiomyoma, head and neck tumour*

© Otolaryngologia 2011, 10(2): 94-98

www.mediton.pl/orl

Adres do korespondencji / Address for correspondence

Marcin Szymański

Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej

Uniwersytetu Medycznego w Lublinie

ul. dr K. Jaczewskiego 8, 20-954 Lublin

tel. 81 724 45 18, fax 81 7244517; marcinszym@poczta.onet.pl

WSTĘP

Mięśniaki gładkokomórkowe to nowotwory mezenchymalne, które zbudowane są z komórek różnicujących się w kierunku mięśni gładkich i bardzo rzadko lokalizują się w rejonie głowy i szyi [1]. W 95% przypadków występują one w macicy, rzadziej w przewodzie pokarmowym i skórze, a tylko 1% tych guzów stwierdza się w narządach głowy i szyi. Wśród mięśniaków gładkokomórkowych narządów głowy i szyi przeważa typ naczyniowy,

a typ nabłonkowy stanowi około 1% przypadków [2,3]. Mięśniaki gładkokomórkowe są nowotworami łagodnymi i wycięcie guza w granicach zdrowych tkanek jest wystarczającym leczeniem. Rozpoznanie ustala się na podstawie obrazu histologicznego preparatu tkankowego, który w przypadkach niejednoznacznych wymaga wykonania badań immunohistochemicznych. Klinicznie prezentują się one najczęściej w postaci niewielkich (2-3 cm) guzów, pokrytych prawidłową błoną śluzową lub

skórą, o jednorodnej wzmożonej konsystencji, przesuwalnych względem otaczających tkanek. Rzadko powodują dolegliwości bólowe, mogą być przyczyną krwawienia z górnego odcinka dróg oddechowych lub przewodu pokarmowego, najczęściej są jednak przyczyną dyskomfortu i uczucia przeszkody podczas połykania i żucia lub bezobjawowym guzem, którego obecność skłania chorego do zgłoszenia się do lekarza.

Prezentujemy przypadki czterech chorych, u których na podstawie obrazu histologicznego preparatu tkankowego, rozpoznano guzy o typie mięśniaka gładkokomórkowego.

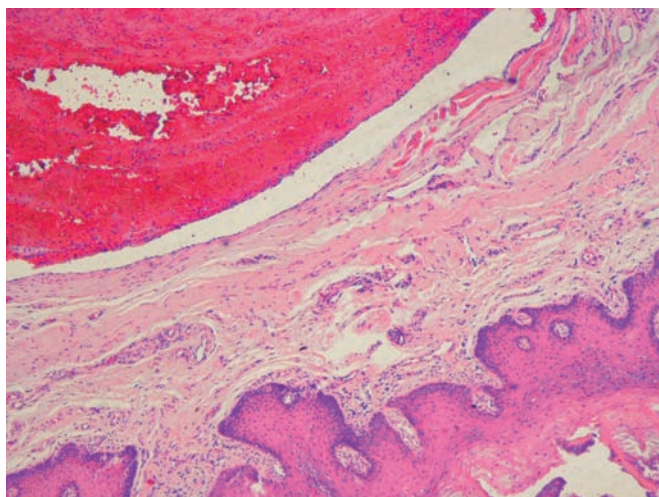
OPISY PRZYPADKÓW

Przypadek 1

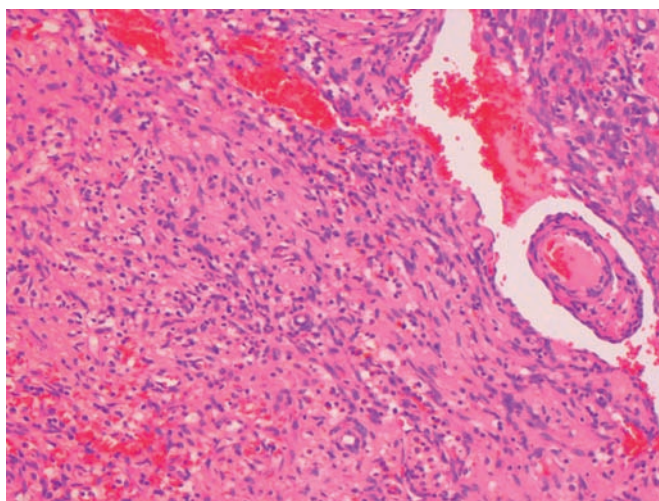
56-letnia kobieta zgłosiła się z powodu dyskomfortu podczas połykania i żucia oraz twardego uwypuklenia na brzegu trzonu języka po stronie lewej. Chora zauważyła zmianę rok wcześniej i, według jej relacji, powstała ona w miejscu urazu doznanego wskutek przygryzienia języka. Chora nie miała dolegliwości bólowych i nie odnotowała powiększania się zmiany. W badaniu otolaryngologicznym wykazano powierzchowny guz o średnicy 5 mm na brzegu trzonu języka po stronie lewej, w połowie jego długości. Guz miał wzmożoną jednorodną konsystencję, był pokryty prawidłową błoną śluzową. Wywiad nie wskazywał na występowanie innych schorzeń, a w badaniu klinicznym i badaniach laboratoryjnych nie znaleziono innych odchyłeń od normy. Guz usunięto w znieczuleniu miejscowym z 2-3 mm marginesem zdrowych tkanek. Materiał przesłano do badania histopatologicznego i otrzymano rozpoznanie Intravascular leiomyoblastoma (ryc.1 i 2). Przez pięć lat po operacji nie obserwowano nawrotu guza.

Przypadek 2

48-letni mężczyzna zgłosił się z powodu narastającego od kilku miesięcy uczucia przeszkody w gardle podczas połykania. Laryngoscopia pośrednia nie wykazała zmian patologicznych. Podczas diagnostycznej ezofagoskopii uwidoczono zmianę o typie polipa tuż poniżej dolnego zwieracza gardła. Polip był przytwierdzony za pomocą wąskiej szypuły do tylnej ściany gardła na granicy z przetykiem, pokryty prawidłową błoną śluzową, w największym wymiarze nie przekraczał 1 cm. Został on usunięty w trakcie ezofagoskopii, a na podstawie badania histopatologicznego stwierdzono zmianę o typie *Leiomyoblastoma*. W trakcie pięciu lat po operacji nie obserwowano nawrotu choroby.



Ryc. 1. Intravascular leiomyoblastoma. Barwienie hematoxyliną i eozyną. Powiększenie 20x



Ryc. 2. Intravascular leiomyoblastoma. Barwienie hematoxyliną i eozyną. Powiększenie 40x

Przypadek 3

75-letni mężczyzna zgłosił się z powodu twardego uwypuklenia na dolnej wardze po stronie prawej. Powierzchny guz o średnicy 5 mm zlokalizowany był na granicy czerwieni wargowej z błoną śluzową przedsionka jamy ustnej, miał wzmożoną, jednorodną konsystencję, uwypuklał czerwień wargową i błonę śluzową, nadając im sine zabarwienie. Zmiana była niebolesna i nie powodowała innych dolegliwości, poza dyskomfortem podczas żucia i połykania. Wywiad nie wskazywał na możliwość doznania urazu wargi w miejscu zmiany, a chory nie potrafił dokładnie określić czasu, od kiedy zauważył guz. Guz wycięto w całości z 2-3 mm marginesem zdrowych tkanek, przesłano do badania histopatologicznego, które wykazało utkanie o typie *Angioleiomyoma*. Zabieg wykonano w znieczuleniu miejscowym a ranę zszyto warstwowo po zaopa-

trzeniu niewielkiego krwawienia elektrokoagulacją. Dziesięcioletnia obserwacja nie wykazała wznowy.

Przypadek 4

46-letnia kobieta zgłosiła się z powodu twardej zmiany uwypuklającej skórę szyi po stronie prawej. Według relacji chorej zmiana powiększała się stopniowo od 6 lat i w tym okresie nie dawała dolegliwości bólowych. Badanie otolaryngologiczne wykazało guz o średnicy 5 cm, zlokalizowany poniżej prawego kąta żuchwy, o wzmożonej jednorodnej konsystencji, pokryty niezmienioną skórą, słabo przesuwalny, niebolesny przy dotyku. Badania laboratoryjne, z wyjątkiem podwyższonej wartości odczynu Biernackiego (40/88), były prawidłowe. Chorą z rozpoznaniem przewlekłego, włókniejącego nacieku zapalnego, postawionego na podstawie badania histologicznego materiału uzyskanego w biopsji cienkoigłowej, zakwalifikowano do leczenia operacyjnego. W trakcie zabiegu usunięto ciemnoczerwony, kulisty guz o gładkiej powierzchni, który leżał pod mięśniem mostowo-obojęzycowosutkowym, pod nerwem błędnym i podjęzykowym, pod żyłą szyjna wewnętrzną oraz pod tętnicą szyjną wspólną, wewnętrzną i zewnętrzną. Guz był mocno złączony z tętnicą szyjną wspólną i wewnętrzną oraz otoczony przydanką tych naczyń. Na podstawie obrazu histologicznego rozpoznano zmianę o typie Angioleiomyoma. Przez szesnaście lat po zabiegu nie obserwowano wznowy guza. Przypadek ten został już przedstawiony w 1988 r. [4].

OMÓWIENIE

Mięśniaki gładkokomórkowe to nowotwory mezenchymalne, które zbudowane są z komórek różnicujących się w kierunku mięśni gładkich i bardzo rzadko lokalizują się w rejonie głowy i szyi [1]. 95% mięśniaków gładkokomórkowych rozwija się w narządach układu płciowego kobiet, 3% w skórze, 0,9% w przewodzie pokarmowym a tylko 1% w narządach głowy i szyi, co ma związek ze stosunkowo niewielkim udziałem tkanki mięśniowej gładkiej w budowie tych narządów [5-8]. Uważa się, że w narządach głowy i szyi, mogą one powstawać z komórek mięśni gładkich budujących naczynia krwionośne, przewody wyprowadzające gruczołów ślinowych, mięśnie przywłosowe lub z odszczepionych, przetrwałych i niezróżnicowanych komórek mezenchymalnych [9,10].

Rozpoznanie guza o typie mięśniaka gładkokomórkowego ustala się na podstawie obrazu histologicznego preparatu tkankowego. Celem odróżnienia mięśniaków gładkokomórkowych od

innych guzów zbudowanych z komórek o kształcie wrzecionowatym wykorzystuje się barwienia identyfikujące kolagen i komórki mięśni gładkich, jak: metoda trójkromowa Masson'a, barwiąca dobrze zróżnicowane komórki mięśni gładkich na czerwono, metoda Mallory'ego, która uwidacznia wewnątrzcytoplazmatyczne miofibryle oraz metoda Van Gieson'a [10]. W przypadku trudności diagnostycznych, wykorzystuje się badanie w kierunku obecności specyficznych dla komórek mięśni gładkich markerów immunohistochemicznych, jak: aktyna, desmina czy vimentyna [11]. Na podstawie obrazu histologicznego guzów wyróżnia się: typ lity-leiomyoma (*solid leiomyoma*), typ naczyńniowy-angioleiomyoma (*vascular leiomyoma*) i typ nabłonkowaty-leiomyoblastoma (*epithelioid leiomyoma*) [11,12]. Typ lity zbudowany jest z pasm dobrze zróżnicowanych komórek kształtu wrzecionowatego z kwasochłoną cytoplazmą oraz wydłużonym, tępo zakończonym jądrem komórkowym. W typie angioleiomyoma występują liczne przestrzenie naczyńniowe wyścielone pojedynczą warstwą komórek śródbłonna [13]. Typ nabłonkowaty zbudowany jest z okrągłych lub wielokątnych komórek ze strefą jasnej cytoplazmy wokół jądra, mogący w niektórych obszarach naśladować guzy nabłonkowe. Według Duhing i wsp., [2] wyżej wymienione typy mięśniaków gładkokomórkowych stanowią kolejne etapy w dojrzewaniu nowotworu, w którym naczyniak przekształca się w mięśniaka przez proliferację komórek mięśni gładkich budujących naczynia w naczyniaku.

W piśmiennictwie znajdujemy opisy guzów o typie leiomyoma zlokalizowanych w nosie i zatokach obocznych nosa, w jamie ustnej, gardle i krtani, tkankach miękkich szyi oraz skórze przewodu słuchowego zewnętrznego [8,11,14,15]. Autorzy podkreślają rzadkość występowania tego rodzaju nowotworów w narządach głowy i szyi, oceniając ją na 1% wszystkich mięśniaków gładkokomórkowych. Według Lloria-Benet i wsp. [3] częstość występowania tych guzów w obrębie jamy ustnej ocenia się na 0,065%. Według Barends i wsp. [7] w jamie nosowej występuje około 3% spośród wszystkich mięśniaków gładkokomórkowych głowy i szyi. W piśmiennictwie możemy znaleźć tylko pojedyncze przypadki mięśniaka zlokalizowanego w przewodzie słuchowym zewnętrznym [14]. Wśród mięśniaków gładkokomórkowych narządów głowy i szyi przeważa typ naczyńniowy, a typ nabłonkowaty stanowi około 1% przypadków [16]. Baden i wsp. [11], dokonali analizy 142 przypadków mięśniaków gładkokomórkowych jamy ustnej, które zostały przedstawione w piśmiennictwie w latach 1882-1992 i stwierdzili występowanie typu naczy-

niowego w 67,0%, typu litego w 31,7%, a typu nabłonkowatego w 1,3% przypadków.

Mięśniaki gładkokomórkowe regionu głowy i szyi występują najczęściej w postaci, małych (do 2-3 cm), wolno rosnących guzów z wyjątkiem typu naczyńniowego, zlokalizowanego głęboko w tkankach miękkich szyi, który podobnie jak w opisanym przez nas przypadku, może osiągać większe rozmiary (do 4-6 cm) [17]. Są to zwykle guzy o wzmożonej, jednorodnej konsystencji, dobrze odgraniczone i przesuwalne względem otaczających tkanek [10]. Guz może mieć zabarwienie czerwone, niebieskie, purpurowe lub nie odróżniać się od otaczającej błony śluzowej, a zależy to głównie od ilości naczyń w guzie i głębokości guza w stosunku do błony śluzowej [10].

Objawy kliniczne zależą od lokalizacji i wielkości guza. Mięśniaki gładkokomórkowe lokalizujące się w jamie ustnej i gardle, najczęściej w obrębie warg, języka, rzadziej na podniebieniu i w topografii mięśnia gardłowo-pierścienneo, są przyczyną dyskomfortu i uczucia przeszkody podczas połykania i żucia [18,19]. Zwykle są to guzy niebolesne, chociaż niektórzy autorzy zwracają uwagę na możliwość występowania dolegliwości bólowych [18]. W jamie nosowej powodują one upośledzenie drożności, bóle głowy, zaburzenie węchu oraz okresowe krwawienie [20]. W krtani są przyczyną chrypki, uczucia ciała obcego w gardle, a w niektórych przypadkach mogą spowodować intensywne krwawienie lub duszność, które wymagają nagłej interwencji chirurgicznej [15].

Są to nowotwory występujące najczęściej u chorych w wieku od 40 do 59 lat [10]. Wpływ płci na częstość występowania mięśniaków gładkokomórkowych nie został jednoznacznie ustalony, a w literaturze znajdujemy sprzeczne doniesienia. Według Brooks i wsp. [21] nowotwór występuje dwa razy częściej u kobiet, natomiast Lloria-Benet i wsp. [3] odnotowali odwrotną proporcję.

Patogeneza mięśniaków gładkokomórkowych narządów głowy i szyi nie została do tej pory poznana. Na możliwość ich występowania w miejscach narażonych na urazy zwrócili uwagę Haedicke i wsp. [22]. Sugerowano również wpływ estrogenów na rozwój mięśniaków gładkokomórkowych, który jednak wydaje się mieć znaczenie tylko w przypadku guzów zlokalizowanych w macicy [23].

Mięśniaki gładkokomórkowe są nowotworami łagodnymi. W histopatologicznej diagnostyce różnicowej należy uwzględnić guzy o typie mięśniakowłókniaków, nerwiakowłókniaków, naczyńniakowłókniaków oraz przede wszystkim nowotwory złośliwe, zwłaszcza dobrze zróżnicowany mięsakomięśniak gładkokomórkowy. Jeżeli w obrazie preparatu tkankowego ocenianego pod mikroskopem świetlnym przy czterdziestokrotnym powiększeniu w polu widzenia stwierdza się więcej niż dziesięć figur mitotycznych, należy podejrzewać charakter złośliwy guza [3]. O charakterze złośliwym świadczyć mogą również cechy atypii komórkowej w obrazie mikroskopowym a w badaniu klinicznym owrzodzenie pokrywającej guz błony śluzowej. Leczeniem z wyboru jest resekcja guza w granicach zdrowych tkanek. Zwykle jest to leczenie wystarczające, chociaż Brooks i wsp. [21] opisują dwa przypadki wystąpienia wznowy, 2 tygodnie i 9 miesięcy po usunięciu mięśniaków gładkokomórkowych podniebienia twardego. Podczas usuwania nowotworów o typie naczyńniowym, może dojść do intensywnego krwawienia [15].

Mięśniaki gładkokomórkowe są rzadkimi nowotworami łagodnymi narządów głowy i szyi, które występują najczęściej w piątej i szóstej dekadzie życia. Wystarczającym leczeniem jest wycięcie guza w granicach zdrowych tkanek. Rozpoznanie ustala się na podstawie obrazu histologicznego preparatu tkankowego. W histopatologicznej diagnostyce różnicowej należy wykluczyć nowotwór złośliwy, jakim jest mięsakomięśniak gładkokomórkowy.

Piśmiennictwo

1. Gurung U, Gurung B, Jha A. Nasal leiomyoma. J Nepal Med Assoc. 2009; 48(173): 72-4.
2. Duhing JT, Ayer JP. Vascular Leyomioma: a study of sixty-one cases. Arch Pathol 1959; 68: 424-30.
3. Lloria-Benet M, Bagán JV, Lloria de Miguel E, Borja-Morant AB, Alonso S. Leiomioma oral: A propósito de un caso clínico. Med Oral 2003; 8: 215-219.
4. Gołębek W. Angioleiomyoma tętnicy szyjnej. Pr Nauk Akad Med Wroc 1988; 20(1): 251-254.
5. Batsakis JG. Tumors of the head and neck: clinical and pathological considerations. 2nd ed. Baltimore: Williams and Wilkins; 1979: 354-356.
6. Enzinger FM, Weiss SW. Soft tissue tumors. 3rd ed. St Louis: Mosby; 1995: 467-489.
7. Ikeda K, Kuroda M, Sakaida N, Maehara M, Ohmura N, Sawada S. Cellular leiomyoma of the nasal cavity: findings of CT and MR imaging. AJNR Am J Neuroradiol 2005; 26(6): 1336-1338.
8. Campelo VE, Neves MC, Nakanishi M, Voegels RL. Nasal cavity vascular leiomyoma: case report and literature review. Rev Bras Otorrinolaringol 2008; 74: 147-50.
9. Tang SO, Tse CH. Leiomyoma of the nasal cavity. J Laryngol Otol 1988; 102: 831-832.

10. González Sánchez MA, Colorado Bonnín M, Berini Aytés L, Gay Escoda C. Leiomyoma of the hard palate: a case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2007; 12(3): 221-224.
11. 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 B Oral Oncol* 1994; 30: 1-7.
12. Ezinger F, Lattes R, Torloni H. Histological typing of Soft Tissue and Tumors. Geneva, World Health Organization 1969: 30-31.
13. 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): 483-488.
14. Yeh SY, Chao TK. Leiomyoma of the external auditory canal-a case report and brief review of the literature. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2005; 262(5): 397-399.
15. Xu Y, Zhou S, Wang S. Vascular leiomyoma of the larynx: a rare entity. Three case reports and literature review. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec* 2008; 70(4): 264-267.
16. Ardekian L, Samet N, Talmi YP, Roth Y, Bendet E, Kronenberg J. Vascular leiomyoma of the nasal septum. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1996; 114: 798-800.
17. Wang CP, Chang YL, Sheen TS. Vascular leiomyoma of the head and neck. *Laryngoscope* 2004; 114(4): 661-665.
18. Felix F, Gomes GA, Tomita S, Fonseca Jr A, Miranda LAEH, Arruda AM. Leimioma doloroso da língua. *Rev Bras Otorrinolaringol* 2006; 72: 715.
19. Álvarez AS, Blanco MP, Pérez DM, Sigüenza GM, Martínez JIP. Leiomyblastoma of the tongue. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2001; 52: 70-73.
20. Yang BT, Wang ZC, Xian JF, Hao DP, Chen QH. Leiomyoma of the sinonasal cavity: CT and MRI findings. *Clin Radiol*. 2009; 64(12): 1203-1209.
21. Brooks JK, Nikitakis NG, Goodman NJ, Levy BA. Clinicopathology characterization of oral angioleiomyomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002; 94: 221-227.
22. Haedicke G, Kaban LB. Smooth-muscle tumors of the oral cavity. *Plast Reconstr Surg* 1988; 81: 264-269.
23. Hirakawa K, Harada Y, Tatsukawa T, Nagasawa A, Fujll M. A case of vascular leiomyoma of the larynx. *J Laryngol Otol* 1994; 108: 593-595.