

Βασικοκυτταρικό αδένωμα παρωτίδας

Παρουσίαση 3 περιπτώσεων

Ελένη ΠΑΡΑΡΑ¹, Δημοσθένης ΗΓΟΥΜΕΝΑΚΗΣ², Κωνσταντίνος ΜΟΥΡΟΥΖΗΣ³, Δημήτριος ΜΑΣΤΑΓΚΑΣ⁴, Χρήστος ΕΥΤΥΧΙΑΔΗΣ⁵, Γεώργιος ΡΑΛΛΗΣ⁶

Τμήμα Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής, Γενικό Νοσοκομείο Αττικής «ΚΑΤ» (Δ/ντής: Δρ Δρ Γ. Ράλλης)
Παθολογοανατομικό Εργαστήριο, Γενικό Νοσοκομείο Αττικής «ΚΑΤ» (Δ/ντρια: Δρ Καλ. Διαμαντοπούλου)

Basal cell adenoma of the parotid

Report of 3 cases

Eleni PARARA, Dimosthenis IGOUMENAKIS, Constantinos MOUROUZIS, Dimitrios MASTAGKAS, Christos EFTYCHIADIS, George RALLIS

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, General Hospital of Attica "KAT" (Head: Dr Dr G. Rallis)
Department of Pathology, General Hospital of Attica "KAT" (Head: Dr Kal. Diamantopoulou)

Ενδιαφέρουσες περιπτώσεις
Cases report

ΠΕΡΙΛΗΨΗ: Παρουσιάζονται 3 περιπτώσεις βασικοκυτταρικού αδενώματος (ΒΚΑ) που αντιμετωπίστηκαν στην κλινική μας. Αιτία προσέλευσης των ασθενών ήταν οπισθογναθιαία δόγκωση, η οποία εμφάνιζε τυπικά κλινικά χαρακτηριστικά καλοήθους παρωτιδικού όγκου. Η διαγνωστική διερεύνηση, σε όλες τις περιπτώσεις, συνίστατο σε απεικονιστικό έλεγχο και παρακέντηση με λεπτή βελόνα. Η απεικόνιση ανέδειξε παρωτιδικούς όγκους με καλοήθεις χαρακτήρες. Η κυτταρολογική εξέταση σε μία περίπτωση ανέδειξε ΒΚΑ, διάγνωση που επιβεβαιώθηκε μετέπειτα ιστολογικά, ενώ στις άλλες δύο ήταν μη διαγνωστική, ενδεικτική ωστόσο καλοήθειας. Η αντιμετώπιση ήταν επιπολής παρωτιδεκτομή σε δύο περιπτώσεις και υφολική σε μία, πάντα με διατήρηση του προσωπικού νεύρου. Όλοι οι ασθενείς είχαν άριστη μετεγχειρητική πορεία. Το ΒΚΑ αποτελεί ένα ιδιαίτερα ασυνήθη ιστολογικό τύπο καλοήθους όγκου των σιαλογόνων αδένων. Η αντιμετώπιση του είναι χειρουργική και δε διαφέρει από αυτή των συχνότερων όγκων. Ο μεμβρανώδης τύπος, μια υποκατηγορία του ΒΚΑ, χαρακτηρίζεται από αυξημένη τάση υποτροπής, κακοήθους εξαλλαγής και σύγχρονης ή ετερόχρονης εμφάνισης σε άλλο σιαλογόνο αδένωμα ή σε αδένες του δέρματος. Σε τέτοιες περιπτώσεις ΒΚΑ επομένως, είναι απαραίτητη η μακροχρόνια παρακολούθηση του ασθενούς τόσο από στοματικό και γναθοπροσωπικό χειρουργό, όσο και από δερματολόγο.

ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ: βασικοκυτταρικό αδένωμα, μονόμορφο αδένωμα, παρωτίδα

Παρελήφθη: 6/11/2018 - Έγινε δεκτή: 23/11/2018

SUMMARY: We present 3 cases of basal cell adenoma of the parotid treated at our Department. All patients complained of a retromandibular lump with clinical traits of benign parotid tumors. Diagnostic workup in all cases included tomography scans and fine needle aspiration biopsy. The former depicted parotid tumors with benign characteristics. Basal cell adenoma (BCA) was the cytology report in one of the patients, later confirmed histopathologically, whereas for the other two patients, FNA yielded an inconclusive report. Management included superficial parotidectomy for two cases and subtotal parotidectomy for the remaining one. All patients had an uneventful recovery. BCA is a rare benign tumor of the salivary glands. It is treated with surgical excision, similarly to more common benign tumors. A subtype of BCA, the membranous BCA, is characterized by higher recurrence rate, malignant transformation and simultaneous or later occurrence in other salivary or dermal glands. It is therefore recommended, for patients with the membranous subtype of BCA, to be long term followed up by an oral and maxillofacial surgeon, as well as a dermatologist.

KEY WORDS: basal cell adenoma, monomorphic adenoma, parotid

Paper received: 6/11/2018 - Accepted: 23/11/2018

¹ DDS, MD, MSc, MDE, PhD, FEBOMS, Επιμελήτρια Α' ΕΣΥ, Τμήμα ΣΓΠΧ ΓΝΑ ΚΑΤ

² DDS, MD, Επικουρικός Επιμελητής ΕΣΥ, Τμήμα ΣΓΠΧ ΓΝΗ «Βενιζέλειο – Πανάνειο»

³ MD, DDS, PhD, FEBOMS, Επιμελητής Α' ΕΣΥ, Τμήμα ΣΓΠΧ ΓΝΑ ΚΑΤ

⁴ MD, DDS, Ειδικεύομενος ΣΓΠΧ, Τμήμα ΣΓΠΧ ΓΝΑ ΚΑΤ

⁵ MD, Επιμελητής Α' ΕΣΥ, Παθολογοανατομικό Τμήμα ΓΝΑ ΚΑΤ

⁶ MD, DDS, PhD, PhD, Συντονιστής Διευθυντής ΕΣΥ, Τμήμα ΣΓΠΧ ΓΝΑ ΚΑΤ

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Το βασικοκυτταρικό αδένωμα (ΒΚΑ) αποτελεί σπάνια καλοήγη οντότητα που περιγράφηκε πρώτη φορά το 1967 από τους Kleinsasser και Klein (deAraujo 2005, Handra-Luca 2018). Παρατηρείται σε ποσοστό 1%-3% μεταξύ των καλοήθων όγκων της παρωτίδας και πολύ σπανιότερα στους ελάσσονες σιαλογόνους αδένες (Rajasenthil και Ravi 2014). Στο τμήμα μας, τα τελευταία εννέα έτη (2010-2018), 74 ασθενείς υποβλήθηκαν σε παρωτιδεκτομή για καλοήγη όγκο (Πιν.1). Τρεις από αυτούς τους όγκους, δηλαδή 4%, ήταν ΒΚΑ. Σκοπός της εργασίας είναι η παρουσίαση των τριών περιπτώσεων ΒΚΑ καθώς και μια συνοπτική αναφορά των βιβλιογραφικών δεδομένων σχετικά με αυτόν τον σπάνιο όγκο.

ΠΕΡΙΓΡΑΦΗ ΠΕΡΙΠΤΩΣΕΩΝ

1η περίπτωση

Πρόκειται για γυναίκα ηλικίας 67 ετών, που προσήλθε αιτιώμενη ανώδυνη διόγκωση στην περιοχή της δεξιάς παρειάς, την οποία είχε αντιληφθεί προ διμήνου. Κατά την κλινική εξέταση διαπιστώθηκε η ύπαρξη ανώδυνης, ευκίνητης και ελαστικής οπισθογονθιαίας διόγκωσης, κάτω από το λοβίο του ωτός, με διάμετρο περίπου 2εκ. χωρίς σημεία φλεγμονής ή εμπλοκής του σύστοιχου προσωπικού νεύρου. Η ασθενής ανέφερε μικρή αύξηση των διαστάσεων της βλάβης κατά τη διάρκεια των προηγούμενων μηνών. Από το ιατρικό ιστορικό δεν ανέκυψε κάποιο ουσιώδες στοιχείο. Η ασθενής υπεβλήθη σε απεικονιστικό έλεγχο με μαγνητική τομογραφία με ενδοφλέβια χορήγηση παραμαγνητικής ουσίας. Η τομογραφία ανέδειξε όγκο διαστάσεων 31x24x33χιλ. στον επιπολής λοβό της δεξιάς παρωτίδας, με χαμηλό σήμα

Πίνακας 1

Συνοπτικός πίνακας ασθενών με καλοήγη πάθηση παρωτίδας που αντιμετωπίστηκαν χειρουργικά κατά το χρονικό διάστημα 2010-2018.

ΙΣΤΟΛΟΓΙΚΗ ΔΙΑΓΝΩΣΗ	No	Ποσοστό %
Πλειόμορφο αδένωμα	38	51,4
Θηλώδες κυσταδενολέμφωμα	29	39,2
ΒΚΑ	3	4,1
Άλλο	4	5,4
Σύνολο	74	100,0
ΦΥΛΟ		
Άνδρες	39	52,7
Γυναίκες	35	47,3
Σύνολο	74	100,0
ΗΛΙΚΙΑ		
21-81 έτη		
Διάμεση τιμή: 54,5 έτη		

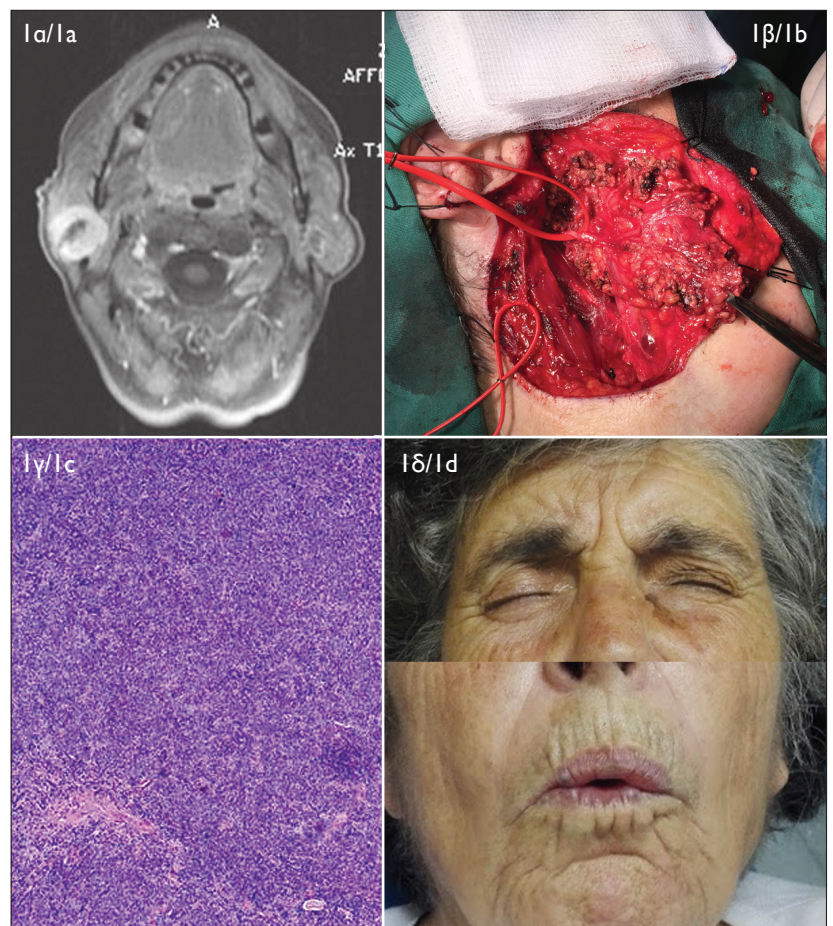
ΒΚΑ: βασικοκυτταρικό αδένωμα, Άλλο: λίπωμα, επιδερμική κύστη.

INTRODUCTION

Basal cell adenoma (BCA) is a rare benign entity first described by Kleinsasser and Klein in 1967 (deAraujo 2005, Handra-Luca et al. 2018). It usually comprises 1-3% of benign parotid tumors and is rare in minor salivary glands (Rajasenthil & Ravi 2012). In our department 74 patients underwent parotidectomy of various extent, for benign tumors, in the last 9 years (2010-2018) (Table 1). Of those tumors, 3, accounting for 4% of parotid adenomas, were BCA. The purpose of this paper is to present these 3 cases of BCA and a literature review of this rare parotid adenoma.

Εικ. 1: ΒΚΑ δεξιάς παρωτίδας (από πάνω αριστερά και δεξιόστροφα): α) Μαγνητική τομογραφία, T1 ακολουθία με καταστολή του λίπους και χορήγηση παραμαγνητικής ουσίας. Διακρίνεται ευμεγέθης όγκος στη δεξιά παρωτίδα, με ομαλό όριο, χαμηλό σήμα κεντρικά και περιφερική περιοχή, η οποία εμφάνιζε πρόσληψη παραμαγνητικής ουσίας, β) Μετά τη μερική επιπολής παρωτιδεκτομή, διακρίνεται το προσωπικό νεύρο και το μείζον ωτιαίο νεύρο, γ) Χρώση αιματοξυλίνης-ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x10, διακρίνονται μικρά βασεόφιλα κύτταρα περιφερικά και μεγαλύτερα κύτταρα με φουσαλιδώδεις πυρήνες που σχηματίζουν υποτυπώδεις πόρους, δ) Μετεγχειρητική άψογη λειτουργία του προσωπικού νεύρου.

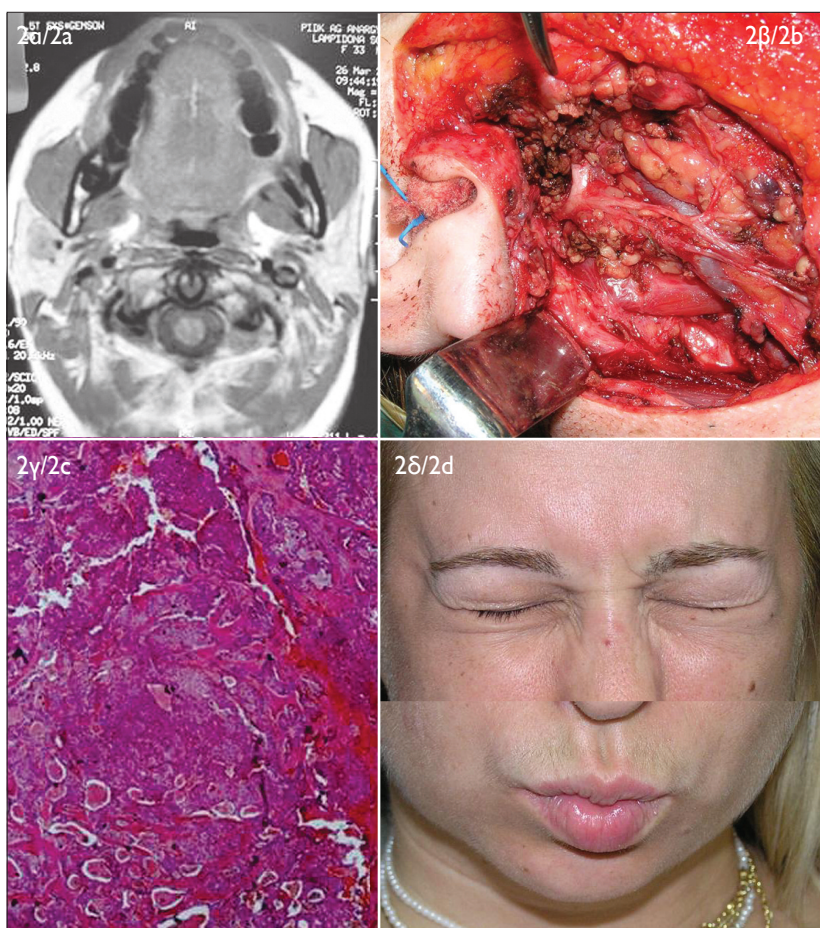
Fig. 1: BCA of the right parotid (beginning from upper left clockwise): a) MRI, T1-weighted with fat suppression and paramagnetic enhancement depicts a large well-demarcated tumor with high peripheral signal, in the right parotid. b) Intraoperatively, following partial superficial parotidectomy, the facial nerve and greater auricular nerve preserved. c) Hematoxylin-Eosin stain, initial magnification x10, small basophilic cells and larger cells in the periphery in basic duct arrangements. d) Postoperatively, the function of the facial nerve remained intact.



στην Τ1 ακολουθία και περιφερική περιοχή, η οποία εμφανίζει πρόσληψη παραμαγνητικής ουσίας (Εικ. 1α). Στη συνέχεια έγινε λήψη υλικού με λεπτή βελόνη για κυτταρολογική εξέταση (fine needle aspiration cytology FNAC), που ανέδειξε ΒΚΑ. Με τη διάγνωση αυτή, η ασθενής υποβλήθηκε σε μερική επιπολής παρωτιδεκτομή και διατήρηση του προσωπικού νεύρου (Εικ. 1β). Η ιστολογική εξέταση του παρασκευάσματος επιβεβαίωσε την κυτταρολογική διάγνωση ΒΚΑ (Εικ. 1γ). Η ασθενής είναι σε παρακολούθηση, με πολύ καλή επούλωση του τραύματος και πλήρη λειτουργία του προσωπικού νεύρου 6 μήνες μετεγχειρητικά (Εικ. 1δ).

Εικ. 2: ΒΚΑ δεξιάς παρωτίδας (από πάνω αριστερά και δεξιόστροφα): α) Μαγνητική τομογραφία, Τ1 ακολουθία με χορήγηση παραμαγνητικής ουσίας. Διακρίνεται όγκος στον εν τω βάθει λοβό της δεξιάς παρωτίδας, με χαμηλότερο σήμα από το αδενικό παρέγχυμα και σαφή όρια, β) Διεγχειρητικά μετά την υφολική παρωτιδεκτομή διακρίνεται το προσωπικό νεύρο και το εναπομείναν τμήμα της παρωτίδας, γ) Χρώση αιματοξυλίνης-ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x4, διακρίνονται μικρά βασεόφιλα κύτταρα με μορφολογία κυττάρων βασικής στιβάδας και εστιακά κυστική διαφοροποίηση, δ) Μετεγχειρητικά άψογη λειτουργία του προσωπικού νεύρου.

Fig. 2: BCA of the right parotid (beginning from upper left clockwise): a) MRI, T1-weighted with paramagnetic contrast enhancement depicts a clearly defined tumor located in the deep lobe, with lower signal than the surrounding gland parenchyma, b) Intraoperatively, following subtotal parotidectomy, the facial nerve is preserved, c) Hematoxylin-Eosin stain, initial magnification x4, depiction of small basaloid cells and focal cystic degeneration, d) Postoperatively, the function of the facial nerve remained intact.



CASES PRESENTATION

1st case

A female patient aged 67 years attended the outpatient clinic because of a painless right retromandibular lump, which she had noticed two months earlier. Clinical examination showed a painless, mobile, rubbery tumor of the right parotid, without any signs of inflammation or facial nerve involvement. The tumor diameter was approximately 2cm. The patient reported very slow growing of the tumor for the past two months. Her general medical history was not contributing. Magnetic resonance imaging (MRI) with intravenous paramagnetic enhancement revealed a sharply delineated lesion of the superficial parotid lobe, measuring 31x24x33mm. The lesion was of low signal intensity on T1 –weighted sequence, with a peripheral area which was enhanced by the gadopentate. Fine needle aspiration yielded a diagnosis of BCA. Subsequently the patient underwent partial superficial parotidectomy with preservation of the facial nerve. Histopathological examination confirmed the cytological diagnosis. The patient is currently followed up 5 months postoperatively, presenting satisfactory wound healing and completely normal function of the facial nerve.

2nd case

A 33 year-old female patient presented with a slightly tender retromandibular growth, which had been noticed ten weeks prior to examination. The tumor was located at the right parotid region, it was of small diameter (c. 1 cm), non-fixed and without signs of facial nerve involvement. The patient had nil for past medical history. MRI with

Table 1

Histopathological type, gender and age of patients with benign parotid tumors, who were surgically treated, for the years 2010-2018.

HISTOPATHOLOGICAL DIAGNOSIS	No	Percentage %
Pleomorphic adenoma	38	51.4
Warthin tumor	29	39.2
BCA	3	4.1
Other	4	5.4
Total	74	100.0
GENDER		
Male	39	52.7
Female	35	47.3
Total	74	100.0
AGE		
21-81 years		
Median: 54.5 years		

BCA: basal cell adenoma, Other: lipoma, dermoid cyst.

2η περίπτωση

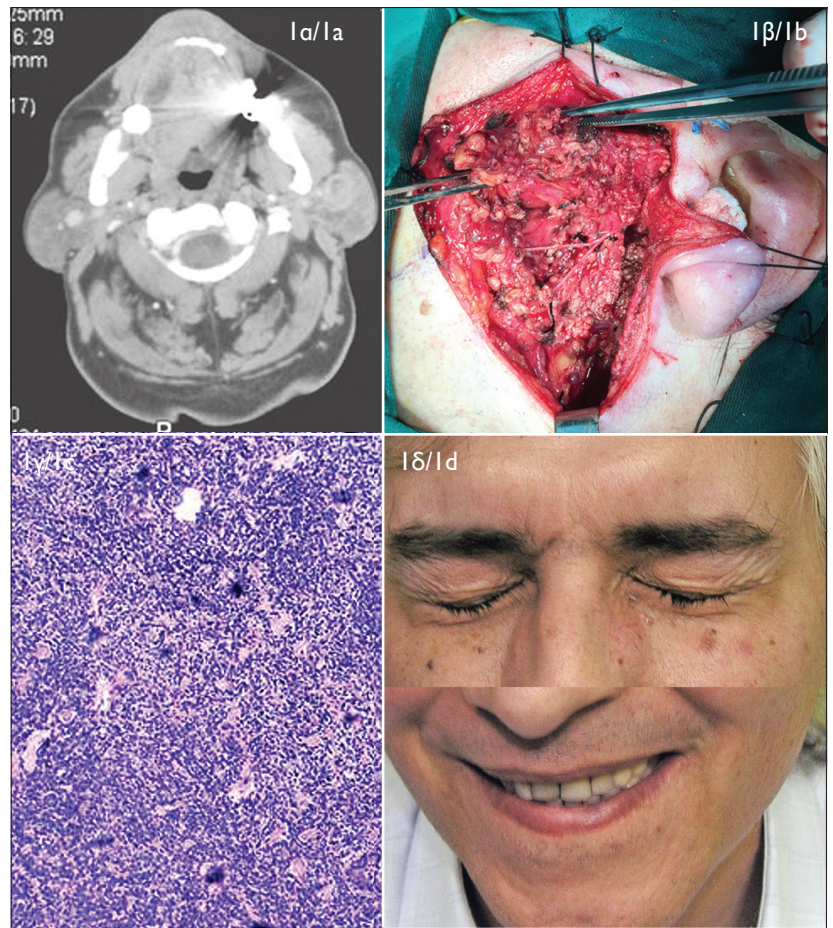
Γυναίκα 33 ετών προσήλθε στα εξωτερικά ιατρεία λόγω ηπίως επώδυνης διόγκωσης με διάρκεια 2,5 μήνες στη δεξιά οπισθογοναθιαία χώρα. Κατά την κλινική εξέταση διαπιστώθηκε ευκίνητη, ελαστικής σύστασης διόγκωση διαμέτρου περίπου 1 εκατοστού στη δεξιά παρωτιδική χώρα. Το σύστοιχο προσωπικό νεύρο λειτουργούσε φυσιολογικά, ενώ το ιατρικό ιστορικό ήταν ελεύθερο. Η ασθενής υπεβλήθη σε απεικονιστικό έλεγχο με μαγνητική τομογραφία με ενδοφλέβια χορήγηση παραμαγνητικής ουσίας. Σε αυτή αποκαλύφθηκε όγκος διαμέτρου 1,5 εκ με σαφή όρια, ο οποίος προσελάμβανε γαδολίνιο και εντοπιζόταν στον εν τω βάθει λοβό της παρωτίδας (Εικ. 2α). Η κυτταρολογική εξέταση ήταν μη διαγνωστική και η ασθενής υπεβλήθη σε υφολική παρωτιδεκτομή με διατήρηση του προσωπικού νεύρου (Εικ. 2β). Η ιστολογική εξέταση ανέδειξε μονόμορφο αδένωμα παρωτίδας βασικοκυτταρικού τύπου (Εικ. 2γ) και 4 λεμφαδένες με αντιδραστική λεμφαδενίτιδα. Κατά την περίοδο παρακολούθησής της, η ασθενής εμφάνισε σύνδρομο Frey 15 μήνες μετεγχειρητικά, που παρήλθε αυτόματα. Σήμερα, 9 χρόνια μετεγχειρητικά, παραμένει ασυμπτωματική (Εικ. 2δ).

3η περίπτωση

Άνδρας 57 ετών προσήλθε με ασυμπτωματική διόγκωση της οπισθογοναθιαίας χώρας αριστερά από τετραμήνου, χωρίς δυσλειτουργία του προσωπικού νεύρου. Το ιατρικό ιστορικό ήταν ελεύθερο. Ο απεικονιστικός έλεγχος με αξονική τομογραφία και ενδοφλέβια χορήγηση σκιαγραφικού έδειξε σαφώς περιγεγραμμένο όγκο διαμέτρου 1,7 εκ. στον εν τω βάθει λοβό της αριστερής παρωτίδας (Εικ. 3α). Ο όγκος προσελάμβανε σκιαγραφικό ανομοιογενώς. Η κυτταρολογική εξέταση ανέδειξε μόνο παρωτιδικό ιστό. Ο ασθενής υπεβλήθη σε υφολική παρωτιδεκτομή με διατήρηση του προσωπικού νεύρου (Εικ. 3β). Μετεγχειρητικά δεν εμφάνισε πάρεση του προσωπικού νεύρου, ενώ η ιστολογική εξέταση έδειξε βασικοκυτταρικό αδένωμα μεμβρανώδους τύπου (Εικ. 3γ). Ο ασθενής παραπέμφθηκε σε δερματολόγο, ο οποίος δεν διαπίστωσε ομόλογους όγκους εξαρτημάτων του δέρματος. Παραμένει σε παρακολούθηση 3 χρόνια μετεγχειρητικά, χωρίς σημεία ή συμπτώματα υποτροπής (Εικ. 3δ).

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Το ΒΚΑ είναι σπάνιος καλοήθης όγκος των σιαλογόνων αδένων. Σε ποσοστό πάνω από 80% εμφανίζεται στην παρωτίδα και σπανιότερα στους ελάσσονες σιαλογόνους αδένες της υπερώας, της παρειάς και του χείλους (Regezzi & Sciubba 1993, Chiu και συν. 2007, Gregoire 2012). Ως γνωστόν η πλειοψηφία των καλοήθων παρωτιδικών όγκων είναι πλειόμορφα αδενώματα με ποσοστό περίπου 85%. Ακολουθούν το θηλώδες κυσταδενολέμφωμα ή όγκος Warthin με ποσοστό περίπου 7% και έπειτα τα μονόμορφα αδενώματα (Regezzi & Sciubba 1993, García και συν. 2006, Maahs και συν. 2015). Σύμ-



Εικ. 3: ΒΚΑ αριστερής παρωτίδας (από πάνω αριστερά και δεξιόστροφα): α) Αξονική τομογραφία με ενδοφλέβια χορήγηση σκιαγραφικού, φαίνεται όγκος του εν τω βάθει λοβού με σαφές όριο, το οποίο ενισχύεται από το σκιαγραφικό, β) Διεγχειρητικά μετά την υφολική παρωτιδεκτομή, διακρίνεται το προσωπικό νεύρο και τμήμα της παρωτίδας, γ) Χρώση αιματοξυλίνης – ηωσίνης αρχική μεγέθυνση x4, μεμβρανώδης τύπος βασικοκυτταρικού αδενώματος, διακρίνεται ηωσινόφιλη υαλοειδοποιημένη ουσία μεταξύ των φωλεών και δοκιδίων των βασεόφιλων κυττάρων, δ) Μετεγχειρητικά άψογη λειτουργία του προσωπικού νεύρου.

Fig. 3: BCA of the left parotid (beginning from upper left clockwise): a) CT scan with IV contrast enhancement. There is a delineated deep lobe tumor, which is homogeneously enhanced, b) Intraoperatively, following subtotal parotidectomy, the facial nerve is preserved, c) Hematoxylin-Eosin stain, initial magnification x4, membranous type of BCA with eosinophilic hyaline substance between the cell nests, d) Postoperative function of the facial nerve.

gadopentate enhancement revealed a tumor of the deep lobe, with a diameter of 1.5 cm. The lesion presented sharply delineated margins and was evenly enhanced with the paramagnetic administration. FNA was inconclusive. The patient underwent subtotal parotidectomy with facial nerve preservation and histopathological examination showed BCA. Four intra-parotid lymph nodes with lymphadenitis were also included in the specimen, explaining possibly the mild tenderness. During follow up, the patient presented Frey's syndrome 15 months postoperatively, which subsided spontaneously. She remains free of symptoms for 9 years postoperatively.

3rd case

A 57-year-old male patient was referred to our depart-

φωνα με τη βιβλιογραφία, τα ΒΚΑ είναι τα συχνότερα μονόμορφα αδενώματα, με συχνότητα 1-3% μεταξύ των καλοήθων όγκων της παρωτίδας (deAraujo 2005). Στη σειρά καλοήθων παρωτιδικών όγκων του Τμήματός μας των τελευταίων εννέα ετών το ΒΚΑ διαγνώστηκε σε ποσοστό 4%, σχετικά υψηλότερο δηλαδή από αυτό της βιβλιογραφίας (Stathopoulos και συν. 2018). Η διαφορά αυτή πάντως, δεδομένου και του μικρού αριθμού των ΒΚΑ, δεν μπορεί παρά να αποδοθεί σε τυχαία στατιστική διακύμανση.

Η συχνότητα εμφάνισης του ΒΚΑ δε φαίνεται να επηρεάζεται από το φύλο, καθώς τα αντίστοιχα ποσοστά ποικίλουν μεταξύ των μελετών (Regezzi & Sciubba 1993, Jang και συν. 2004, de Araujo 2005, Garcia και συν. 2006, Lee και συν. 2017). Όσον αφορά στην ηλικία, αναφέρεται αυξημένη πιθανότητα εμφάνισης μεταξύ της 5ης και της 7ης δεκαετίας της ζωής (Rajasenthil & Ravi 2014), δεδομένο που επιβεβαιώνεται και στις εν λόγω περιπτώσεις. Κλινικά το ΒΚΑ της παρωτίδας δεν μπορεί να διαφοροδιαγνωστεί από το πλειόμορφο αδένωμα (Chiu και συν. 2007). Κατά τον απεικονιστικό έλεγχο με αξονική τομογραφία, τα ΒΚΑ συνήθως έχουν την εικόνα στρογγυλού μορφώματος με σαφή όρια, υπέρπυκνου σε σχέση με το παρέγχυμα της παρωτίδας. Προσλαμβάνουν σκιαγραφικό, άλλοτε ομοιόμορφο και άλλοτε όχι. Συχνά επίσης παρατηρείται κυστική εκφύλιση κεντρικά ή περιφερικά του όγκου (Jang και συν. 2004). Σχετικά με την απεικόνιση με μαγνητική τομογραφία, παρατηρείται έντονη σκιαγράφιση στην T2 ακολουθία (Chiu και συν. 2007), όπως και για τα πλειόμορφα αδενώματα (Joe & Westesson 1994). Η έλλειψη μεγάλων σειρών ασθενών, λόγω της σπανιότητας του ιστολογικού τύπου, αποτελεί τροχοπέδη στη διατύπωση σαφών απεικονιστικών κριτηρίων για τη διάκριση των μονόμορφων αδενωμάτων της παρωτίδας.

Η αναρρόφηση υλικού με λεπτή βελόνα και η κυτταρολογική του εξέταση αποτελεί την ενδεικνυόμενη αρχική εξέταση για όγκους της παρωτίδας (Gregoire 2012). Ωστόσο, η πιο ασφαλής διάγνωση τίθεται με την παθολογοανατομική εξέταση. Οι ιστολογικοί χαρακτήρες του ΒΚΑ είναι παρόμοιοι με του βασικοκυτταρικού αδενοκαρκινώματος και του αδενοειδούς κυστικού αδενοκαρκινώματος. Ουσιαστικά πρόκειται για μικρά βασεόφιλα κύτταρα με πενιχρό κυτταρόπλασμα, που διατάσσονται σε διάφορους σχηματισμούς, ηθμοειδείς, συμπαγείς ή σωληνώδεις. Εξαιτίας της ιστολογικής αυτής ομοιότητας, για τη διαφοροδιάγνωση του ΒΚΑ από τους δύο παραπάνω κακοήθεις όγκους, απαιτείται λεπτομερής μικροσκοπική εξέταση σε συνδυασμό με ανοσοϊστοχημεία. Στο ΒΚΑ διαπιστώνονται κύτταρα της βασικής στιβάδας του επιθηλίου, σε διάφορους σχηματισμούς, ενώ απουσιάζει το στρώμα μυξωματώδους ή χονδρικού ιστού που παρατηρείται στα πλειόμορφα αδενώματα (Regezzi & Sciubba 1993, deAraujo 2005). Ιστολογικά ανευρίσκονται συνήθως 2 τύποι κυττάρων: μικρά βασικοκυττα-

ment with an asymptomatic left retromandibular lump of 4 months, measuring c. 1 cm. His past medical history was non-relevant. Contrast-enhanced computed tomography scan (CT) showed heterogeneous enhancement of a well delineated tumor of the left parotid, located in the deep lobe and of 1.7 cm diameter. FNA yielded parotid tissue, but considering clinical and radiological findings, the patient was offered a subtotal parotidectomy with facial nerve preservation. Histopathologically the diagnosis was BCA of the membranous type. Postoperatively, the facial nerve was intact and satisfactory wound healing was noted during follow up. The patient was referred to a dermatologist, who found no homologous dermal lesions. He is symptomless and without recurrence for 3 years.

DISCUSSION

BCA is a rare benign salivary gland tumor. Most reported lesions, over 80%, occur in the parotid. Minor salivary glands of the palate, buccal mucosa or the lower lip are also affected (Regezzi & Sciubba 1993, Chiu et al. 2007, Gregoire 2012). As a fact, pleomorphic adenomas are the commonest benign parotid tumor, accounting for approximately 85% of all adenomas. Cystadenolymphomas or Warthin's tumors, rise to 7% and are next, followed by monomorphic adenomas (Regezzi & Sciubba 1993, Garcia et al. 2006, Maahs et al. 2015). BCA are rare and comprise 1-2% of parotid adenomas (deAraujo 2005). In our series, the percentage of BCA among parotid adenomas was relatively higher than the literature reported (Stathopoulos et al. 2018), rising to 4%. However, this may only be attributed to our small sample size.

The incidence of BCA does not seem to be affected by gender, because the associated ratios vary significantly among studies (Regezzi & Sciuba 1993, Jang et al. 2004, deAraujo 2005, Garcia et al 2006, Lee et al. 2017). Regarding the age at presentation, most report that it is between the 5th and 7th decade of life (Rajasenthil & Ravi 2014), which is supported by the present study. Clinically, BCA of the parotid cannot be distinguished from pleomorphic adenomas (Chiu et al. 2007). On a CT scan, they usually appear as delineated rounded lesions, more dense than the gland parenchyma. Enhancement may be uniform or not. There is also a high tendency to present a cystic degeneration, either centrally or peripherally (Jang et al. 2004). Regarding the MRI appearance, BCA appear to be of high signal intensity on T2-weighted imaging (Chiu et al. 2007), as is the case for pleiomorphic adenomas (Joe & Westesson 1994). The lack of large series of patients with parotid BCA prevents so far the establishment of specific features that would serve as criteria and lead to a radiological diagnosis.

Cytological examination is indicated for investigation of parotid tumors, following aspiration with a fine needle (Gregoire 2012). Nevertheless, histopathology provides a definitive and safer diagnostic tool. The histopatholog-

ροειδή κύτταρα περιφερικά και μεγαλύτερα κύτταρα με φυσαλιδώδεις πυρήνες, συνήθως κεντρικά, ή σχηματίζοντας υποτυπώδεις πόρους (Lee και συν. 2017). Διακρίνονται 5 υποτύποι του ΒΚΑ, ανάλογα με την αρχιτεκτονική δομή των κυττάρων που αναφέρθηκε παραπάνω: συμπαγής, δοκιδώδης, σωληνώδης, ηθμοειδής και μεμβρανώδης, ενώ αρκετά συνήθης είναι η ταυτόχρονη εμφάνιση περισσότερων του ενός αρχιτεκτονικών προτύπων (Rajaseshthil και Ravi 2014, Lee και συν. 2017). Πολυεστιακή εντόπιση, αυξημένη τάση υποτροπής αλλά και κακοήθους εξαλλαγής εμφανίζει ο μεμβρανώδης τύπος (Scheller και συν. 2013, Rajaseshthil και Ravi 2014). Τα ιστολογικά χαρακτηριστικά του μεμβρανώδους τύπου περιλαμβάνουν συναθροίσεις κυττάρων που περιβάλλονται από ηωσινόφιλο υαλοειδοποιημένο υλικό. Λόγω της ιστολογικής εικόνας, ο μεμβρανώδης τύπος ΒΚΑ θεωρείται ανάλογος των όγκων από εξαρτήματα του δέρματος ή κυλινδρωμάτων (Rajaseshthil και Ravi 2014). Ο μεμβρανώδης τύπος ΒΚΑ παρουσιάζεται επίσης σε ασθενείς που πάσχουν από το σύνδρομο Brooke-Spiegler. Η κατάσταση αυτή κληρονομείται με αυτοσωμικά επικρατή τύπο και χαρακτηρίζεται από εμφάνιση πολλαπλών όγκων από εξαρτήματα του δέρματος και στους σιαλογόνους αδένες. Οι όγκοι είναι συνήθως καλοήθεις. Κύριο χαρακτηριστικό του συνδρόμου είναι η ποικιλία φαινότυπων στις πάσχουσες οικογένειες. Μπορεί να υπάρχει μόνο ένα ή συνδυασμός των παρακάτω: τριχοεπιθηλίωμα, κυλινδρωμάτωση, παρωτιδικό βασικοκυτταρικό αδένωμα, δερματικό βασικοκυτταρικό καρκίνωμα (Fenske και συν. 2000). Ο τρίτος ασθενής που παρουσιάζεται, εμφάνιζε ιστολογικά βασικοκυτταρικό αδένωμα μεμβρανώδους τύπου και παραμένει σε ετήσια παρακολούθηση. Τρία χρόνια μετεγχειρητικά παραμένει χωρίς υποτροπή ή εμφάνιση άλλης εστίας.

Θεραπεία εκλογής του ΒΚΑ της παρωτίδας είναι η χειρουργική εξαίρεση. Για όγκους του επιπολής λοβού προτιμάται η επιπολής, ενώ για όγκους του εν τω βάθει λοβού η υφολική παρωτιδεκτομή. Όπως και για τους άλλους καλοήθεις όγκους της παρωτίδας, με τις παραπάνω μεθόδους εξασφαλίζεται εξαίρεση σε υγιή όρια που μειώνει τις πιθανότητες υποτροπής, ενώ παράλληλα προστατεύεται το προσωπικό νεύρο από τραυματισμό (Papadogeorgakis 2011, Gregoire 2012).

ΣΥΜΠΕΡΑΣΜΑΤΑ

Τα μονόμορφα, βασικοκυτταρικά αδενώματα της παρωτίδας είναι σπάνια. Θα πρέπει να συμπεριλαμβάνονται στην λίστα με τις πιθανές διαγνώσεις σε ογκωτικές εξεργασίες της παρωτίδας, ιδίως των ασθενών στην 5η-7η δεκαετία της ζωής. Τα απεικονιστικά τους χαρακτηριστικά δεν είναι παθογνωμονικά. Η αντιμετώπισή τους είναι η ίδια που εφαρμόζεται για άλλες καλοήθεις ογκωτικές εξεργασίες του αδένα, ενώ, όπως σε όλες τις περιπτώσεις, η διενέργεια FNA είναι ουσιώδης στη διαγνωστική διαδικασία (Papadogeorgakis 2011). Συνιστάται αυξημέ-

ical features of BCA are similar to those of basal cell adenocarcinoma and adenoid cystic adenocarcinoma. Basically there are small basal cells with a slight cytoplasm, which are arranged in various patterns, cribriform, solid or tubular. Therefore immunohistochemical examination is often required for a distinction between BCA and the above mentioned malignancies. The myxomatoid or chondroid stroma which characterizes pleiomorphic adenomas is absent (Regezzi & Sciubba 1993), and basal cells are usually of two types: small basal cells peripherally, which surround larger cells with bubble-like nuclei and form duct-like shapes (Lee et al. 2017). There are 5 subtypes of BCA, according to the cell architecture: solid, trabecular, tubular, cribriform and membranous, whereas combinations are also common (Rajaseshthil & Ravi 2014, Lee et al. 2017). The membranous subtype is frequently multifocal and presents with higher recurrence rates as well as malignant transformation tendency (Scheller et al. 2013, Rajaseshthil & Ravi 2014). Histopathologically, the membranous type BCA comprises of cell clusters in an eosinophilic hyaline intercellular material. This is the reason why this subtype is considered as a dermal analog (Rajaseshthil & Ravi 2014). It is also common in patients with Brooke-Spiegler syndrome, a condition inherited as autosomal dominant. The Brooke-Spiegler syndrome presents multiple phenotypes among affected families. It is characterized by multiple and usually benign dermal and salivary tumors. One or more of the following lesions in various combinations are main features of the syndrome: trichoepithelioma, cylindromatosis, parotid BCA, basal cell carcinoma (Fenske et al. 2000). The 3rd patient presented had a membranous type BCA. He is under follow up and has not had any recurrence or new lesion for the past 3 years.

The treatment of choice for parotid BCA is surgical removal. Superficial parotidectomy or subtotal parotidectomy with facial nerve preservation is generally indicated depending on the tumor location. Similarly to other benign parotid tumors, the above management assures safe excision with minimal recurrency rates and facial nerve protection (Papadogeorgakis 2011, Gregoire 2012).

CONCLUSIONS

BCA of the parotid is rare. It should be included in the differential diagnosis of parotid tumors in patients aged between 40-70 years. BCA radiological features are not pathognomonic. The management is no different than for any other benign parotid tumor, but FNA is clearly a basic step for diagnosis (Papadogeorgakis 2011). Histopathological characteristics of BCA should yield a high suspicion rate especially in younger patients, as the tumor should then be distinguished from adenoid cystic adenocarcinoma or basal cell adenocarcinoma (Nagao

νος δείκτης υποψίας κατά την παθολογοανατομική εξέταση παρωτιδικού όγκου με χαρακτηριστικά βασικοκυτταρικού αδενώματος, ιδίως σε νεότερους ασθενείς, καθώς πρέπει να διαφοροδιαγιγνώσκονται από αδενοειδή κυστικά ή βασικοκυτταρικά καρκινώματα (Nagao και συν. 1997, Chiu και συν. 2007, Lee και συν. 2017). Θα πρέπει τέλος να τονίσουμε ότι ο μεμβρανώδης τύπος του ΒΚΑ παρουσιάζει αυξημένη πιθανότητα υποτροπής, κακοήθους εξαλλαγής και ταυτόχρονης ή ετεροχρονισμένης εμφάνισης σε άλλους σιαλογόνους αδένες ή στο δέρμα (Fenske και συν. 2000, Garcia και συν. 2006, Scheller και συν. 2013). Επομένως, επιβάλλεται η μακροχρόνια μετεχειρητική παρακολούθηση των ασθενών με αυτό τον ιστολογικό τύπο.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ/REFERENCES

- Chiu NC, Wu HM, Chou YH, Li WY, Chiou YY, Guo WY, Chang CY: Basal Cell Adenoma Versus Pleomorphic Adenoma of the Parotid Gland: CT Findings. *American Journal of Roentgenology* 189 (5): 254-261, 2007
- de Araujo VC: Basal cell adenoma, In: Barnes L, Everson JW, Reichart P, Sidransky D, editors: World Health Organization classification of tumors. Pathology and genetics of head and neck tumors. Lyon: IARC 2005. pp. 261-2
- Fenske C, Carter N, Banerjee P, Holden C: Brooke-Spiegler Syndrome Locus Assigned to 16q12-q13. *Journal of Investigative Dermatology* 114(5): 1057-1058, 2000
- García RG, Cha SHN, Muñoz Guerra MF, Gamallo Amat C: Basal cell adenoma of the parotid gland. Case report and review of the literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 11: E206-9, 2006
- Gregoire C: Salivary gland tumors: the parotid gland. In: Bagheri, Bell and Khan: Current therapy in Oral and Maxillofacial Surgery, Elsevier Saunders 2012, pp 450-60
- Handra-Luca A: Basal cell adenoma. Pathology Outlines.com website. <http://www.pathologyoutlines.com/topic/salivaryglandsbasalcelladenoma.html>. Accessed June 13th, 2018
- Jang M, Park D, Lee SR, Hahm CK, Kim Y, Kim Y, Park CK, Tae K, Park MH, Park YW: Basal cell adenoma in the parotid gland: CT and MR findings. *Am J Neuroradiol* 25: 631-5, 2004

et al. 1997, Chiu et al. 2007, Lee et al. 2017). Furthermore, regarding the membranous subtype of parotid BCA, there is a high tendency of concurrent or later appearance in other salivary glands or the skin, recurrence or malignant transformation of the tumor (Fenske et al. 2000, Scheller et al. 2013). Generally patients with this subtype should be long term followed up postoperatively.

- Lee YH, Huang WC, Hsie MS: CTNNB1 mutations in basal cell adenoma of the salivary gland. *Journal of the Formosan Medical Association* 2017 <https://doi.org/10.1016/j.jfma.2017.11.011>
- Maahs GS, Oppermann PO, Maahs LGP, Machado Filho G, Ronchi AD: Parotid gland tumors: a retrospective study of 154 patients. *Braz J Otorhinolaryngol* 81:301-6, 2015
- Nagao T, Suqano I, Ishida Y, Matsuzaki O, Konno A, Kondo Y, Nagao K: Carcinoma in basal cell adenoma of the parotid gland. *Pathol Res Pract* 193(3):171-178, 1997
- Rajaseshthil V, Ravi A: Basal Cell Adenoma of the Parotid Gland A Rare Entity *Indian J Surg* 76(5):408-410, 2014
- Regezzi JA, Sciubba J: Salivary gland diseases. In: Regezzi and Sciubba: Oral Pathology – Clinical – Pathologic correlations. WB Saunders 1993, pp239-302
- Scheller EL, Pritchett CV, Shukla A, Pepper JP, Marentette LJ, McHugh JB: Synchronous ipsilateral sebaceous lymphadenoma and membranous basal cell adenoma of the parotid. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol. Apr*;115(4):e41-6, 2013
- Stathopoulos P, Igoumenakis D, Smith WP: Partial Superficial, Superficial, and Total Parotidectomy in the Management of Benign Parotid Gland Tumors: A 10-Year Prospective Study of 205 Patients. *J Oral Maxillofac Surg. Feb*;76(2):455-459, 2018

Διεύθυνση επικοινωνίας:

Ελένη Παραρά

Κοιμήσεως Θεοτόκου 16,

Μαρούσι 15124, Ελλάδα

Τηλ.: 6972 711 027, 213 2086616, Fax: 213 2083540

e-mail: eleniparara@gmail.com

Address:

Eleni Parara

16 Koimiseos Theotokou Str.,

15124 Marousi, Greece

Tel.: 0030 6972 711 027, 213 2086616, Fax: 213 2083540

e-mail: eleniparara@gmail.com

