

Σιαλολίπωμα: Αναφορά περιπτώσεως και σύντομη ανασκόπηση της βιβλιογραφίας

Παναγιώτης ΚΑΡΑΚΩΣΤΑΣ¹, Απόστολος ΜΑΤΙΑΚΗΣ², Αναστάσιος Ι. ΜΥΛΩΝΑΣ³,
Ελευθέριος ΑΝΑΓΝΩΣΤΟΥ⁴, Αθανάσιος ΠΟΥΛΟΠΟΥΛΟΣ⁵

Εργαστήριο Στοματολογίας Τμήματος Οδοντιατρικής, Σχολή Επιστημών Υγείας Α.Π.Θ.

(Δ/ντής: Καθηγητής Αθανάσιος Πουλόπουλος)

Κλινική Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής Θεραπευτηρίου «METROPOLITAN»

(Δ/ντής: Αναπλ. Καθηγητής Φ. Χ. Τζέρμπος)

Sialolipoma: A report of a case and a brief review of the literature

Panagiotis KARAKOSTAS, Apostolos MATIAKIS, Anastassios I. MYLONAS,
Eleftherios ANAGNOSTOU, Athanasios POULOPOULOS

Department of Oral Medicine and Pathology, School of Dentistry, Aristotle University of Thessaloniki

(Head: Professor Athanasios Pouloupoulos)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, "METROPOLITAN" Hospital (Head: Assoc. Professor F. Ch. Tzerbos)

Ενδιαφέρουσα περίπτωση
Case report

ΠΕΡΙΛΗΨΗ: Το σιαλολίπωμα αποτελεί ένα σπάνιο καλόγηθες νεόπλασμα της στοματικής κοιλότητας. Στην παρούσα εργασία περιγράφεται περίπτωση σιαλολιπώματος που αναπτύχθηκε στον βλεννογόνο της αριστερής παρειάς. Τα κλινικά και ιστοπαθολογικά ευρήματα του ασθενή αναφέρονται ενδελεχώς. Σύμφωνα με την διεθνή βιβλιογραφία, αναφέρονται διάφορες θεωρίες ιστογένεσης του όγκου. Η θεραπεία εκλογής είναι η ριζική χειρουργική αφαίρεση της βλάβης. Η βιοψία και ο ιστοπαθολογικός έλεγχος πρέπει πάντοτε να επιβεβαιώνουν την κλινική διάγνωση.

ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ: σιαλολίπωμα, στοματικό καλόγηθες νεόπλασμα, στοματικό λίπωμα.

SUMMARY: Background: The present paper focuses on examining a case report of an oral sialolipoma located on the left buccal mucosa. Case report: The patients' clinical state was thoroughly studied, along with the findings of his histopathological examinations. The surgical treatment and postoperative course are also within the scope of this report. Numerous histogenesis theories and the appropriate tumor treatment are mentioned within the article, being always in accordance with the relative literature. Conclusion: Oral sialolipoma is a very rare benign neoplasm, which occurs most commonly in adult males. Surgical excision is the treatment of choice. The diagnosis must always be established by histological examination.

KEY WORDS: sialolipoma, oral benign neoplasm, oral lipoma.

¹ Οδοντίατρος, Μεταπτυχιακός φοιτητής Εργαστηρίου Προληπτικής Οδοντιατρικής, Περιodontολογίας και Βιολογίας Εμφυτευμάτων, Τμήματος Οδοντιατρικής Α.Π.Θ.

² Οδοντίατρος, Ιατρός, Διδάκτωρ Οδοντιατρικής Α.Π.Θ., Λέκτωρ Στοματολογίας, Τμήματος Οδοντιατρικής Α.Π.Θ.

³ Δρ Δρ ΣΓΠΧ, Αναπλ. Διευθυντής, Κλινική ΣΓΠΧ Θεραπευτηρίου «METROPOLITAN».

⁴ Ιατρός Παθολογοανατόμος, Συνεργάτης Εργαστηρίου Στοματολογίας, Τμήματος Οδοντιατρικής Α.Π.Θ.

⁵ Οδοντίατρος, Msc, Διδάκτωρ Οδοντιατρικής Α.Π.Θ., Καθηγητής και Διευθυντής Εργαστηρίου Στοματολογίας, Τμήματος Οδοντιατρικής Α.Π.Θ.

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Ως σιαλολίπωμα ορίζεται μία σπάνια παραλλαγή λιπώματος των σιαλογόνων αδένων (Mitra S και συν., 2016, de Moraes M και συν., 2010). Αποτελεί μόλις το 0,3% του συνόλου των όγκων σιαλογόνων αδένων στους ενήλικες, ενώ παρατηρείται σπανιότατα στις παρωτίδες (<0,5% των περιπτώσεων) (Mitra S και συν., 2016, Mazlumoglu MR και συν., 2015). Η πρώτη αναφορά εμφανίζεται το 1991 από τους Nagao και συν. ως σιαλολίπωμα (Nagao T και συν., 2001). Παρόλο που άλλοι όροι όπως αδενολίπωμα, ογκοκυτταρικό σιαλολίπωμα και ογκοκυτταρικό λιποαδένωμα έχουν επίσης χρησιμοποιηθεί για τη βλάβη αυτή, ο όρος σιαλολίπωμα παραμένει ο πλέον κατάλληλος λόγω της μη κακοήθους φύσης του (Mitra S και συν., 2016, Agaimy A και συν., 2013).

Όσον αφορά στο φύλο, παρατηρείται σαφής επικράτηση των ανδρών, ενώ η ηλικία των ασθενών κυμαίνεται από τα 20 έως τα 74 έτη και μέση ηλικία είναι τα 64 έτη (Mitra S και συν., 2016, Leyva Huerta E και συν., 2015). Ορισμένοι συγγραφείς υποστηρίζουν δημογραφικές διαφορές μεταξύ των λιπωμάτων των ελασσόνων και των μειζόνων σιαλογόνων αδένων (Leyva Huerta E και συν., 2015). Κατ' αυτούς, αναφέρεται επικράτηση των ανδρών με αναλογία 2:1,3 στα σιαλολίπωμα των μειζόνων σιαλογόνων αδένων, ενώ για τα σιαλολίπωμα των ελασσόνων σιαλογόνων αδένων η αναλογία είναι 1,8:1 υπέρ των γυναικών (Leyva Huerta E και συν., 2015).

Όσον αφορά στην εντόπιση της βλάβης, η παρωτίδα αποτελεί την πιο συχνή θέση (Mitra S και συν., 2016). Λιγότερο συχνά εντοπίζεται στους υπογνάθιους σιαλογόνους αδένες, καθώς και στους ελάσσονες σιαλογόνους αδένες της υπερώας, του εδάφους του στόματος, των παρειών, της γλώσσας και του οπισθογομφίου τρίγωνου (Mitra S και συν., 2016, Leyva Huerta E και συν., 2015).

Κλινικά το σιαλολίπωμα αποτελεί βραδέως αναπτυσσόμενη, ασυμπτωματική, λεία ή λοβώδη, μαλακή, σαφώς περιγεγραμμένη, κιτρινωπή μάζα (de Moraes M και συν., 2010, Agaimy A και συν., 2013, O'Rourke C και συν., 2015). Το μέγεθος των σιαλολιπωμάτων των ελασσόνων σιαλογόνων αδένων εκτιμάται κατά μέσο όρο στα 17 χιλ (Leyva Huerta E και συν., 2015, Handra-Luca A, 2015).

ΑΝΑΦΟΡΑ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Ασθενής άνδρας ηλικίας 58 ετών προσήλθε στην Κλινική μας λόγω μίας διόγκωσης εδραζόμενη στον αριστερό παρειακό βλεννογόνο, πλησίον της συνχειλίας (Εικ. 1), η οποία έγινε αντιληπτή από αυτόν προ μηνός. Το ατομικό ιατρικό ιστορικό του ήταν ελεύθερο.

Η κλινική εξέταση έδειξε υποβλεννογόνιο ογκίδιο στην προαναφερθείσα περιοχή. Η βλάβη ήταν μαλακής συστάσεως, ανώδυνη κατά την ψηλάφηση, σαφώς περιγεγραμμένη, καλυπτόμενη από ροδόχρουν βλεννογόνο διαμέτρου περίπου 1 εκ. Κατά την εξωστοματική εξέτα-

INTRODUCTION

Sialolipoma is defined as a rare variant of lipomas in association with entrapped normal salivary gland elements (Mitra S et al, 2016, de Moraes M et al, 2010). This type of lipoma occurs rarely in the parotid gland (<0.5% of incidence), whereas it comprises merely 0.3% of all salivary gland tumors in adults (Mitra S et al, 2016, Mazlumoglu MR et al, 2015). Nagao et al first described this variant of lipoma as sialolipoma in 1991 (Nagao T et al, 2001). Although other terms such as adenolipoma, oncocyctic sialolipoma and oncocyctic lipoadenoma have also been used for this lesion, the term sialolipoma remains the most appropriate one, due to its non-neoplastic epithelial component (Mitra S et al, 2016, Agaimy A et al, 2013).

A clear male prevalence has been reported in most cases with an age range of 20–74 years and a mean age of 64 years (Mitra S et al, 2016, Leyva Huerta E et al, 2015). Some authors suggest the existence of demographical differences between sialolipomas occurring in minor and major salivary glands (Leyva Huerta E et al, 2015). According to them, a male prevalence with a ratio of 2:1.3 is reported in sialolipomas of major salivary glands, whereas sialolipomas of minor salivary glands are more frequent in female patients with a ratio of 1.8:1 (Leyva Huerta E et al, 2015).

Concerning the location of the lesion, the most frequent site of this tumor is the parotid gland (Mitra S et al, 2016). Less frequent locations comprise the submandibular gland, hard and soft palate, floor of the mouth, buccal and labial mucosa, tongue and retromolar area (Mitra S et al, 2016, Leyva Huerta E et al, 2015).

The sialolipoma is mainly characterized as slow-growing asymptomatic, smooth or lobulated, well-circumscribed, soft, yellowish mass (de Moraes M et al, 2010, Agaimy A et al, 2013, O'Rourke C et al, 2015). Regarding the size of sialolipomas of minor salivary glands, there is an occurrence of an average size of 17mm (Leyva Huerta E et al, 2015, Handra-Luca A, 2015).

CASE REPORT

A 58-year-old male patient visited our Department due to a swelling located at the left buccal mucosa near to commissure (Fig. 1). As the patient mentioned, the duration of the lesion was a month before the examination. He had a free medical history.

The clinical examination revealed a tumor located in the aforementioned region. The swelling was soft, elastic and painless in palpation, well defined and covered by pinkish mucosa with a diameter of 1 cm approximately. Extraoral examination revealed no swollen lymph nodes. The initial



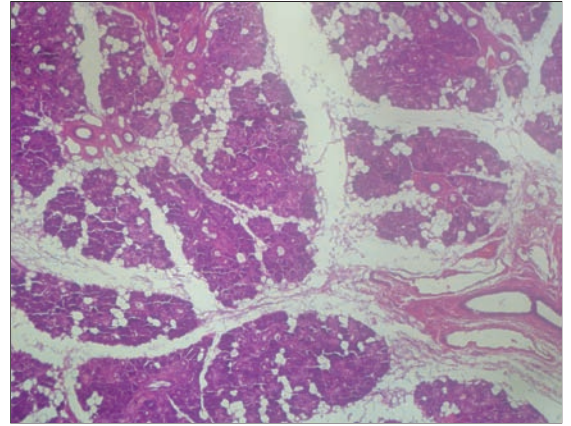
Εικ. 1: Σιαλολίπωμα. Υποβλενωγόνιο ογκίδιο στο βλενωγόνο της αριστερής παρειάς.

Fig. 1: Sialolipoma. Submucosal tumor in the left buccal mucosa.

ση δεν διαπιστώθηκε ή ύπαρξη τραχηλικών λεμφαδένων. Η κλινική διάγνωση της βλάβης συμπεριέλαβε το στοματικό λίπωμα καθώς και άλλους καλοήθεις όγκους της στοματικής κοιλότητας. Υπό τοπική αναισθησία έγινε χειρουργική εξαίρεση του όγκου και συρραφή του χειρουργικού τραύματος. Η μετεγχειρητική πορεία του ασθενούς υπήρξε ομαλή.

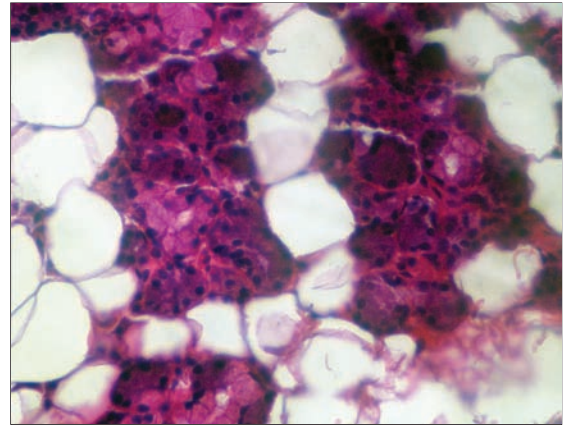
Η ιστοπαθολογική εξέταση αποκάλυψε οροβλενώδεις λοβούς σιαλογόνων αδένων. Λιποκύτταρα εντοπίστηκαν όχι μόνο σε αυτούς τους λοβούς αλλά και στο ενδιάμεσο στρώμα. Επιπλέον παρατηρήθηκε ελαφρά διάταση των πόρων, αγγειακή συμφόρηση και εντοπισμένες αιμορραγικές βλάβες. Αντιθέτως, δεν αναφέρθηκαν φλεγμονώδεις διηθήσεις, ίνωση ή ατροφία των αδενοκυψελών. Τα παραπάνω ευρήματα έθεσαν τη διάγνωση του σιαλολιπώματος (Εικ. 2, 3).

Τέσσερα έτη μετά την αφαίρεση του όγκου δεν παρατηρήθηκε υποτροπή.



Εικ. 2: Σιαλολίπωμα. Αδενοκυψέλες και εκφορτικοί πόροι ελάσσονος σιαλογόνου αδένα με παρουσία λοβίων από λιποκύτταρα (H-E x40).

Fig. 2: Sialolipoma. Numerous acini and ducts of minor salivary glands admixed with lobules of adipocytes (H-E x40).



Εικ. 3: Σιαλολίπωμα. Οροβλενώδη αδενικά κύτταρα με λιποκύτταρα (H-E x400).

Fig. 3: Sialolipoma. Seromucinous acinar cells admixed with adipocytes (H-E x400).

clinical diagnosis included oral lipoma or other benign tumor. Under local anesthesia, the tumor was surgically excised.

The histopathological examination revealed muco-serous lobes of salivary glands. A number of adipocytes were detected not only inside these lobes but also in the intermediate layer. Mild distension of ducts, vascular congestion and focal hemorrhagic perfusions were also found. No inflammatory infiltrations, fibrosis or atrophy of glandular hives were reported. The above findings established a sialolipoma diagnosis (Fig. 2,3).

The patient's postoperative period was uneventful and no recurrence was reported four years following the surgical excision.

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Περιγράφεται περίπτωση σιαλολιπώματος του βλεννογόνου της αριστεράς παρειάς. Η χειρουργική εξαίρεση αποτέλεσε τη θεραπεία εκλογής και η ιστοπαθολογική εξέταση έθεσε τη διάγνωση του σιαλολιπώματος.

Σύμφωνα με τα ιστολογικά ευρήματα, το σιαλολιπώμα χαρακτηρίζεται ως ένας σαφώς περιγεγραμμένος όγκος, περιβαλλόμενος από κάψα, αποτελούμενος από αδενοκυψέλες και πόρους σιαλογόνων αδένων εντός λιπώδους μάζας (Mitra S και συν., 2016, O'Rourke C και συν., 2015). Εκτός αυτών, αναφέρεται η ύπαρξη μεταπλασίας του επιθηλίου των εκφορητικών πόρων σε συνδυασμό με διαστολή αυτών καθώς και με στοιχεία φλεγμονής (Mitra S και συν., 2016, Mazlumoglu MR και συν., 2015). Παρόλο που η ακριβής αιτιοπαθογένεια του σιαλολιπώματος δεν είναι γνωστή, έχουν προταθεί τρεις κύριες θεωρίες ιστογένεσης: πρώτον ότι αποτελεί ένα αδένωμα με ώριμο λιπώδη ιστό, δεύτερον ότι είναι ένα λίπωμα εντός του παρεγχύματος του σιαλογόνου αδένου (η πιο πιθανή) και τρίτον ότι αποτελεί εξέλιξη αμαρτώματος (Akrish S και συν., 2011). Επίσης αναφέρεται η υπόθεση ότι το σιαλολιπώμα προέρχεται από παγιδευμένα αγγεία εντός λιπώδους ιστού (Handra-Luca A, 2015). Μεταξύ των αιτιολογικών παραγόντων έχουν συμπεριληφθεί το τραύμα, η λοίμωξη, ο χρόνιος ερεθισμός ή η ορμονική διαταραχή (Handra-Luca A, 2015).

Η κίτρινη χροιά της βλάβης συνηγορεί υπέρ του λιπώματος (de Moraes M και συν., 2010). Όσον αφορά στον προεγχειρητικό απεικονιστικό έλεγχο της βλάβης, αναφέρονται η υπολογιστική τομογραφία, η μαγνητική τομογραφία, καθώς και το υπερηχογράφημα (Mitra S και συν., 2016, O'Rourke C και συν., 2015). Σε κάθε περίπτωση, η ιστοπαθολογική εξέταση επιβεβαιώνει την τελική διάγνωση (O'Rourke C και συν., 2015).

Η διαφορική διάγνωση περιλαμβάνει την διάμεση λιπώματωση ή τη λιπώδη ατροφία, το ινολίπωμα, το αδενολίπωμα, το αληθές λίπωμα, το στρογγυλοκυτταρικό λίπωμα, το πλειόμορφο αδένωμα ή το μυοεπιθηλίωμα (Mitra S και συν., 2016, Handra-Luca A, 2015). Αντιθέτως, η φλεγμονή, το αιμαγγείωμα και το σιαλοβλάστωμα κατά τη βρεφική ηλικία μπορούν εύκολα να διαχωριστούν από το σιαλολιπώμα (Mitra S και συν., 2016). Το τραυματικό ψευδολιπώμα δεν περιλαμβάνεται διότι η εξέλιξή του είναι μεγάλης διάρκειας και επανορθωτικά στοιχεία όπως η ίνωση και η φλεγμονή είναι περιορισμένα (Handra-Luca A, 2015).

Η χειρουργική εξαίρεση συνιστά τη θεραπεία εκλογής, ειδικά για το σιαλολιπώμα ελασσόνων σιαλογόνων αδένων (Mitra S και συν., 2016). Στην πλειοψηφία των σιαλολιπωμάτων της παρωτίδας, προτείνεται είτε η επιφανειακή είτε η ολική παρωτιδεκτομή με την ταυτόχρονη εξ ολοκλήρου αφαίρεση του όγκου (Lee PH και συν., 2014).

Όπως και με τους άλλους τύπους των λιπωμάτων, δεν έχει αναφερθεί υποτροπή ύστερα από την ριζική χει-

DISCUSSION

A case of a sialolipoma located at the left buccal mucosa, has already been described. Surgical excision was the treatment of choice and the histopathological examination established the diagnosis of sialolipoma.

According to histological findings, the sialolipoma is characterized as a well-delineated or encapsulated tumor consisted of non-neoplastic salivary gland acini and ducts entrapped within the adipose mass (Mitra S et al, 2016, O'Rourke C et al, 2015). More specifically, a number of ductal metaplasias, in the form of oncocytic, squamous or sebaceous metaplasias in combination with ductal dilatation, periductal fibrosis and inflammation have been detected (Mitra S et al, 2016, Mazlumoglu MR et al, 2015). Despite the fact that the precise etiology of sialolipoma formation is not specified, three main theories of histogenesis have been proposed: 1) an adenoma composed of mature adipose tissue; 2) a benign lipoma with entrapped salivary gland elements (the most possible); or 3) a hamartomatous process (Akrish S et al, 2011). Furthermore, an alternative hypothesis claims that sialolipoma derives from entrapped vessels in adipose tissue (Handra-Luca A, 2015). Favoring factors of the lesion comprise events such as trauma, infection, chronic irritation or hormone imbalance (Handra-Luca A, 2015).

The initial diagnosis of a lipoma is based on the presence of yellow hue of the gross specimen and its ability to float in formalin (de Moraes M et al, 2010). More specifically, a number of imaging methods (computed tomography, magnetic resonance image, ultrasound-sonography) have been suggested presurgically (Mitra S et al, 2016, O'Rourke C et al, 2015). Nonetheless, the histopathological exam confirms the final diagnosis (O'Rourke C et al, 2015).

Differential diagnosis includes interstitial lipomatosis or lipomatous atrophy, fibrolipoma, adenolipoma, true lipoma, spindle cell lipoma, pleomorphic adenoma or myoepithelioma (Mitra S et al, 2016, Handra-Luca A, 2015). Conversely, infection, haemangioma and sialoblastomas during infancy can be easily distinguished from sialolipoma (Mitra S et al, 2016). Traumatic pseudolipoma is not considered, because its evolution is long and reparative signs like fibrosis and inflammation are restricted (Handra-Luca A, 2015).

Surgical excision is the treatment of choice (Mitra S et al, 2016), especially in minor salivary glands sialolipoma. Superficial or total parotidectomy with entire surgical excision of the tumor is recommended for the most cases of sialolipoma of parotid gland (Lee PH et al, 2014). Moreover, removal of the entire lesion combined with a total lobectomy is required for superficial multifocal lesions that are located at the deep lobular region (Lee PH et al, 2014).

As in other types of lipoma, no recurrence following surgery has been reported (Mitra S et al, 2016, de Moraes

ρουργική αφαίρεση (Mitra S και συν., 2016, de Moraes M και συν., 2010). Δεν αναφέρεται κακοήθης εξαλλαγή, λαμβανομένης υπόψη και της σπανιότητας της βλάβης (Mitra S και συν., 2016, de Moraes M και συν., 2010).

ΣΥΜΠΕΡΑΣΜΑΤΑ

Το σιαλολίπωμα συνιστά μία σπάνια παραλλαγή του λιπώματος με καλοήθη κλινική συμπεριφορά. Η θεραπεία εκλογής περιλαμβάνει την πλήρη χειρουργική εξαίρεση της βλάβης προκειμένου να ελαχιστοποιηθεί η υποτροπή της. Τέλος, η ιστοπαθολογική εξέταση επιβεβαιώνει τη διάγνωση.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ/REFERENCES

- Agaimy A, Ihrler S, Märkl B, Lell M, Zenk J, Hartmann A, Michal M, Skalova A: Lipomatous salivary gland tumors: a series of 31 cases spanning their morphologic spectrum with emphasis on sialolipoma and oncocytic lipoadenoma. *Am J Surg Pathol* 37: 128-37, 2013
- Akrish S, Leiser Y, Shamira D, Peled M: Sialolipoma of the salivary gland: two new cases, literature review, and histogenetic hypothesis. *J Oral Maxillofac Surg* 69: 1380-4, 2011
- de Moraes M, de Matos FR, de Carvalho CP, de Medeiros AM, de Souza LB: Sialolipoma in minor salivary gland: case report and review of the literature. *Head Neck Pathol* 4: 249-52, 2010
- Handra-Luca A: Vascular changes in hard palate sialolipoma: Sialoangiolipoma or vascular malformation? *J Oral Maxillofac Pathol* 19: 269, 2015
- Lee PH, Chen JJ, Tsou YA: A recurrent sialolipoma of the parotid gland: A case report. *Oncol Lett* 7: 1981-3, 2014

M et al, 2010). The risk of malignant transformation is also unknown, due to the rarity of the lesion (Mitra S et al, 2016, de Moraes M et al, 2010).

CONCLUSIONS

The sialolipoma constitutes a rare variant of lipoma with a benign clinical behavior. The treatment of choice is thorough surgical excision of the lesion in order to minimize the recurrence of the lesion. Last but not least, the histopathological examination establishes the diagnosis.

- Leyva Huerta E, Quezada Rivera D, Tenorio Rocha F, Tapia JL, Portilla Robertson J, Gaitán Cepeda LA: Sialolipoma of minor salivary glands: presentation of five cases and review of the literature with an epidemiological analyze. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 67: 105-9, 2015
- Mazlumoglu MR, Altas E, Oner F, Ucuncu H, Calik M: Congenital Sialolipoma in an Infant. *J Craniofac Surg* 26: 696-7, 2015
- Mitra S, Sundaram A, Vasishta RK, Dey P: Sialolipoma of infancy - a rare benign salivary gland neoplasm and a potential diagnostic pitfall in cytology. *Cytopathology* 27: 501-503, 2016
- Nagao T, Sugano I, Ishida Y, Asoh A, Munakata S, Yamazaki K, Konno A, Kondo Y, Nagao K: Sialolipoma: A report of seven cases of a new variant of salivary gland lipoma. *Histopathology* 38:30-36, 2001
- O'Rourke C, Khan H, Wallis F, Fenton JE: Lipomas of the submandibular space: case report of a sialolipoma and review of diagnostic investigations available. *J Oral Maxillofac Surg* 73: 99-105, 2015

Διεύθυνση επικοινωνίας:

Απόστολος Ματιάκης

Τσιμισκή 93,

54622 Θεσσαλονίκη

Τηλ.: 2310 236207

e-mail: amatiakis@dent.auth.gr

Address:

Apostolos Matakis

93, Tsimiski Str.,

54622 Thessaloniki, Greece

Tel.: 0030 2310 236207

e-mail: amatiakis@dent.auth.gr

