

Bukkal Bölgede Minör Tükürük Bezi Kökenli Adenomatoid Hiperplazi: Olgu Sunumu ve Literatür Taraması

Adenomatoid Hyperplasia of Minor Salivary Glands in the Buccal Region: Case Report and Review of Literature

Elif ASLAN¹

<https://orcid.org/0000-0001-7609-999X>

M. Bengü ERDEN ŞAHİN²

<https://orcid.org/0000-0002-6599-3504>

Esin ALPÖZ¹

<https://orcid.org/0000-0001-6654-9715>

Dilara ÖZYİĞİT BÜYÜKTALANCI³

<https://orcid.org/0000-0001-9897-3529>

¹Ege Üniversitesi, Diş Hekimliği Fakültesi, Ağız Diş ve Çene Radyolojisi Anabilim Dalı, İzmir

²Tınaztepe Üniversitesi, Diş Hekimliği Fakültesi, Ağız Diş ve Çene Cerrahisi Anabilim Dalı, İzmir

³Ege Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Tıbbi Patoloji Anabilim Dalı, İzmir

Atıf/Citation: Aslan, E., Erden Şahin M.B., Alpöz, E., Özyiğit Büyüktalancı, D., (2023). Bukkal Bölgede Minör Tükürük Bezi Kökenli Adenomatoid Hiperplazi: Olgu Sunumu ve Literatür Taraması. Ege Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi Dergisi, 2023; 44_2, 163-167

ÖZ

Adenomatoid hiperplazi, minör tükürük bezlerinin nadir görülen lokalize non-neoplastik ve asemptomatik hiperplazisidir. Etiyolojisi kesin tanımlanmamış olmakla birlikte lokal travmanın bu lezyonun gelişiminde etkin rol aldığı düşünülmektedir. Minör tükürük bezi kaynaklı adenomatoid hiperplazi en sık palatal bölgede, daha az sıklıkla bukkal mukozada, labial mukozada ve retromolar bölgede izlenmektedir. Ultrasonografi (USG), diğer yumuşak doku lezyonlarının ayırıcı tanısında olduğu gibi, adenomatoid hiperplazinin ayırıcı tanısında da yardımcı bir görüntüleme yöntemi olarak rol oynamaktadır. Ancak kesin tanının koyulabilmesi için histopatolojik incelemeye başvurulması gerekmektedir. Adenomatoid hiperplazinin tedavisi lokal anestezi altında ekzisyon yoluyla gerçekleştirilmekte ve cerrahi sonrası nüks genellikle gözlenmemektedir. Oral kavitede nadir olarak görülmesine karşın adenomatoid hiperplazi lezyonlarının fark edilmesi ve detaylı olarak incelenmesi, benzer klinik görünüme sahip başka nodüler lezyonların ve tükürük bezi kaynaklı neoplazilerin adenomatoid hiperplaziden ayırımı açısından önem taşımaktadır. Bu olgu sunumunda, 70 yaşında kadın hastanın sağ bukkal mukozasında saptanan adenomatoid hiperplazi olgusu, klinik, ultrasonografik ve histopatolojik bulgularıyla birlikte tartışılmaktadır.

Anahtar Kelimeler: Adenomatoid hiperplazi, bukkal mukoza, minör tükürük bezi, ultrasonografi

ABSTRACT

Adenomatoid hyperplasia is a rare non-neoplastic, localized, and asymptomatic hyperplasia of minor salivary glands. Even though its etiology has not been clearly identified, local trauma may play an active role in the development of this lesion. Adenomatoid hyperplasia originating from minor salivary glands is most commonly observed in the palatal region, and less frequently in the buccal mucosa, labial mucosa, and retromolar area. Ultrasonography (USG) plays an important role in the differential diagnosis of adenomatoid hyperplasia, as in the differential diagnosis of other soft tissue lesions. However, histopathological examination should be applied in order to determine a definitive diagnosis. Treatment of adenomatoid hyperplasia is performed by excision under local anesthesia, and recurrence is usually not observed after surgery. The recognition and detailed examination of adenomatoid hyperplasia lesions are important in terms of distinguishing other nodular lesions and salivary gland-derived neoplasias with similar clinical appearance. In this case report, a 70-year-old female patient presented with an adenomatoid hyperplasia lesion in her right buccal mucosa is discussed with clinical, ultrasonographic, and histopathological findings.

Keywords: Adenomatoid hyperplasia, buccal mucosa, minor salivary gland, ultrasonography

Sorumlu yazar/Corresponding author*: aslanelif090@gmail.com

Başvuru Tarihi/Received Date: 16.01.2023

Kabul Tarihi/Accepted Date: 16.01.2023

GİRİŞ

Adenomatoid hiperplazi, minör tükürük bezlerinin nadir görülen lokalize non-neoplastik büyümesidir.¹ İlk olarak 1971 yılında Giansati ve ark.² tarafından tanımlanan bu patolojik oluşum, oral kavitede en sık palatal bölgede görülmekle birlikte bukkal mukozada, retromolar bölgede ve labial mukozada da rapor edilmiştir.^{1,3} Klinik olarak yüzeyden kabarık, sert ve ağrısız bir lezyon olan adenomatoid hiperplazi, normal ağız içi mukozası renginde olabileceği gibi kırmızimsı ya da mavimsi renklere de olgular da bildirilmiştir.^{1,4,5}

Adenomatoid hiperplazi, genellikle erkeklerde ve 4.-5. dekatlar arasında görülmektedir.⁶ Literatürde adenomatoid hiperplazi için tanımlanan kesin bir etiyolojik faktör bulunmamasıyla birlikte³ lokal travmanın hiperplazik lezyonun gelişiminde etkin rol aldığı ileri sürülmektedir.^{1,6} Buna karşın, bazı araştırmacılar ise bu lezyonu bir hamartom olarak tanımlamakta ve gelişimsel varyasyon olarak adlandırmaktadır.^{3,6} Adenomatoid hiperplazinin tükürük bezi neoplazileri ile ilişkili olduğuna dair yeterli veri bulunmamasına karşın diğer tükürük bezi ve yumuşak doku patolojilerinden ayrımı yönünden histopatolojik inceleme önem taşımaktadır. Histopatolojik kesitlerde, normal görünüme sahip hiperplazik tükürük bezi dokusunun ve müsinle dolu asiner hücrelerin izlendiği rapor edilmektedir.^{1,2,6} Kesin tanı biyopsi materyalinin mikroskopik incelemesi ile mümkün olmakta⁵ fakat bir yumuşak doku görüntüleme yöntemi olan ultrasonografinin (USG) kullanımı da tükürük bezi kaynaklı patolojik yapıların ön tanısına ve ayırıcı tanısına katkı sağlamaktadır.⁷ Adenomatoid hiperplazinin kabul gören tedavi yöntemi lezyonun total eksizyonu olup⁴ bir olgu haricinde cerrahi tedavi sonrası nüks bildirilmemiştir.¹

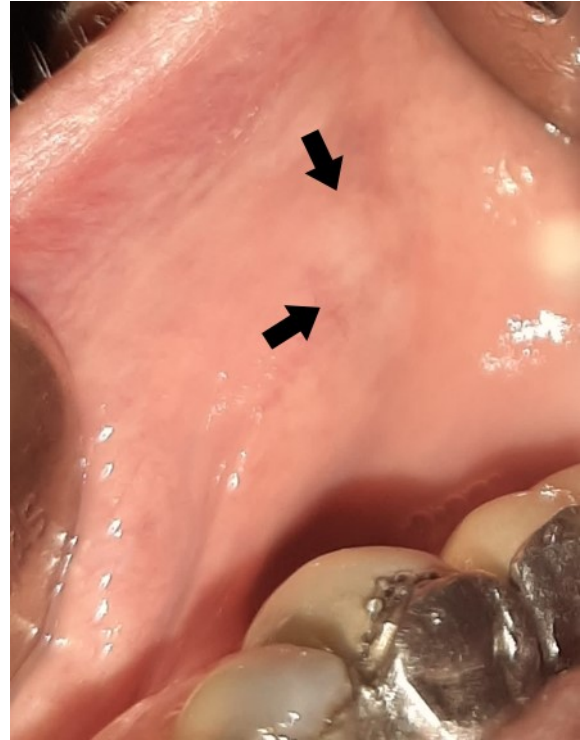
Bu olgu raporunda, bukkal mukoza yerleşimli adenomatoid hiperplazi olgusu, USG görüntüleriyle birlikte sunularak bukkal mukoza yerleşimli gelişebilecek diğer patolojik oluşumlarla ayırıcı tanısı tartışılmaktadır.

OLGU SUNUMU

70 yaşında kadın hasta, sağ bukkal mukozasında yaklaşık bir hafta önce fark edilen ağrılı şişlik nedeni ile kliniğimize başvurdu. Hastanın medikal anamnezinde, hipertansiyon haricinde bir sistemik hastalığının olmadığı, antihipertansif dışında bir ilaç kullanmadığı ve sigara içmediği öğrenildi. Ağız içi muayenede, sağ bukkal mukozada palpe edilebilen ve hafif derecede ağrılı nodüler bir lezyon saptandı (Resim 1). Lezyonun üzerini örten mukozanın normal renkte olduğu ve hastada ekstraoral şişliğe yol açmadığı gözlemlendi. Panoramik radyografi ile yapılan radyolojik incelemede, ilgili bölgedeki dişlerde ve alveolar kemikte herhangi bir patolojik durum izlenmedi (Resim 2). Klinik bulgulara göre lezyonun ön tanısında mukosel ve oral lipoma lezyonları düşünüldü. Hitachi F37 ultrason cihazı

(Hitachi Aloka Medical Ltd., Tokyo, Japonya) ile lineer prob kullanılarak 27 Hz’de yapılan USG incelemesinde, bukkal mukozada sınırları keskin, yoğun anekoik alan içerisinde hiperekoik ve hipoekoik bölgeler içeren lezyon saptandı (Resim 3a, 3a1). Lezyonun boyutları 7,3x8,7x6,1 mm olarak ölçüldü. USG incelemesi sonrası ayırıcı tanıda tükürük bezi neoplazileri olan pleomorfik adenom, mukoeypidermoid karsinom ve adenokistik karsinom düşünüldü.

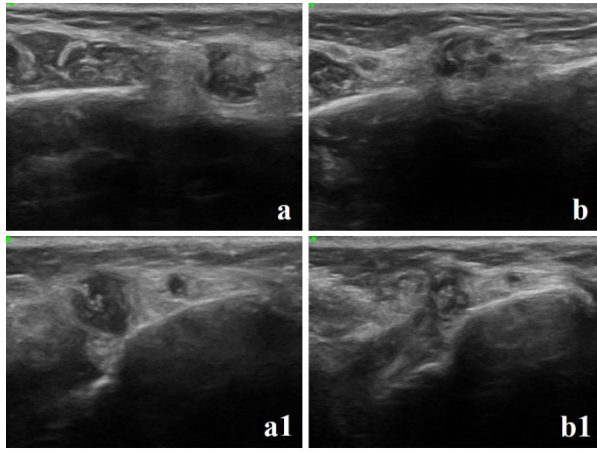
Söz konusu bölgedeki olası travmayı elimine etmek için hastanın sağ üst ve alt sabit protezleri sökülerek hasta bir hafta sonra kontrole çağrıldı. Kontrol seansında yapılan klinik muayenede alınan anamnezde hasta ağrı şikayetinin geçtiğini ifade etti. USG incelemesinde ise lezyonun iç yapısında anekoik alanların azaldığı ve lezyonun çevre dokularla yakın ekojenitede olduğu saptandı (Resim 3b, 3b1). Minör tükürük bezinden köken alan patolojik bir oluşum olabileceği düşünülerek hasta Ağız, Diş ve Çene Cerrahisi Anabilim Dalı’na yönlendirildi. Lokal anestezi altında eksizyonel biyopsi yapılarak çıkan materyal değerlendirilmek üzere %10’luk formalin solüsyonu içerisinde Tıbbi Patoloji Anabilim Dalı’na gönderildi. Hematoksilen&Eozin (H&E) ile boyanan kesitlerle yapılan histopatolojik incelemede intralobuler genişlemiş duktus yapıları ve normale göre daha geniş görünümde müsin dolu asiner hücreler tespit edildi ve lezyon adenomatoid hiperplazi tanısı aldı (Resim 4). Altı ay sonra yapılan kontrol USG değerlendirmesinde herhangi bir rekürrens saptanmadı.



Resim 1. Sağ bukkal mukozada, yüzeyden kabarık, üstü normal renkte mukoza ile örtülü nodüler lezyon (siyah ok).



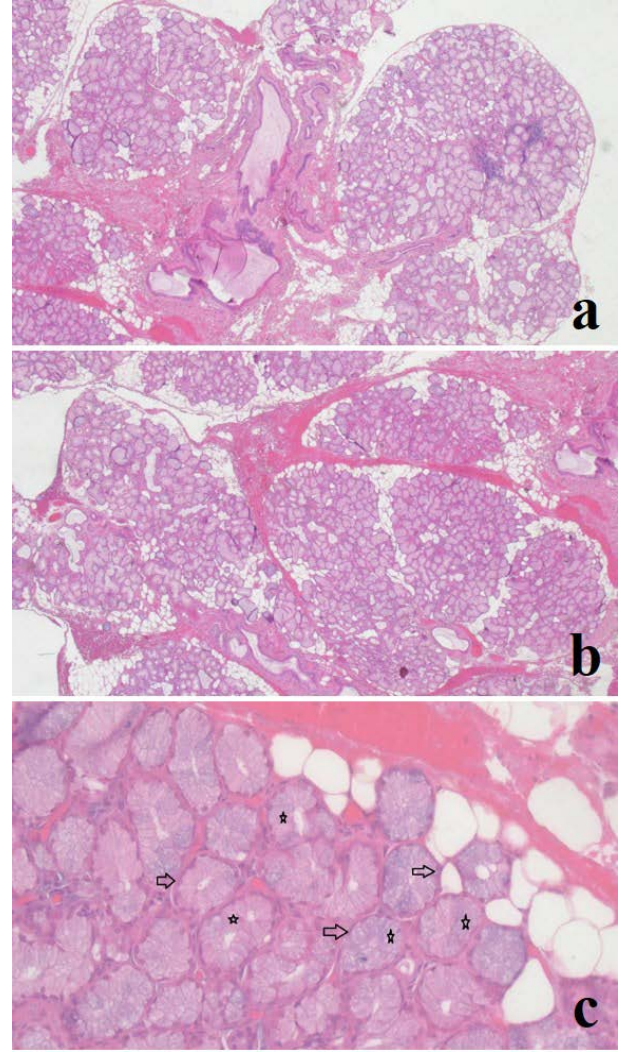
Resim 2. Hastanın başvuru tarihinde çekilen panoramik radyografi görüntüsünde ilgili bölgede kemikte herhangi bir patoloji izlenmemektedir.



Resim 3. (a) Transversal ultrason görüntüsünde, masseter kasın anteriorunda izlenen, sınırları belirgin anekoik alan içerisinde hipoeoik ve hiperekoik odaklar içeren lezyon. (a1) Longitudinal ultrason görüntüsünde, sınırları belirgin anekoik alan içerisinde hipoeoik ve hiperekoik odaklar içeren lezyon. (b) Travma etkeninin ortadan kaldırılmasından bir hafta sonra transversal ultrason görüntüsünde alınan görüntüsü. (b1) Travma etkeninin ortadan kaldırılmasından bir hafta sonra alınan longitudinal ultrason görüntüsü.

TARTIŞMA

Adenomatoid hiperplazi, ağız içinde nadir olarak görülen bir non-neoplastik tükürük bezi hiperplazisidir.⁶ Literatürde adenomatoid hiperplazinin genel popülasyondaki insidansına yönelik bir veriye rastlanmamakla birlikte olgu raporları erkek bireylerde, 4. ve 5. dekatlarda daha sık görüldüğüne işaret etmektedir (Tablo 1).^{3,4,8-10} Bununla birlikte, bizim vaka raporumuzda da olduğu gibi, kadın hastalarda adenomatoid hiperplazi gelişimini bildiren araştırmacılar da mevcuttur.^{2,11,12} Literatüre göre adenomatoid hiperplazinin izlendiği en küçük yaş grubu yeni doğan dönemi olup¹³ bilinen en yaşlı hasta ise 7. dekattadır.⁵ Bizim olgumuzda da, Buncher ve ark.⁵ ile uyumlu olarak, 7. dekatta adeno-



Resim 4. Lezyondan alınan eksizyonel biyopsi örneğine ait histopatolojik kesitlerde izlenen (a) düzgün sınırlı lobüller arşitektürde asinüs yapıları ve intralobuler genişlemiş duktus yapıları (H&E boya, X25), (b) lobuler asinüs yapılarını çevreleyen bağ dokudan oluşan septumlar (H&E boya, X25), (c) normale göre daha geniş-şişmiş görünümde müsin dolu asiner hücreler (yıldız) ve çevreleyen myoepitelyal hücreler (ok) (H&E boya, X200).

matoid hiperplazi gelişimi saptanan bir hasta raporlanmıştır.

Adenomatoid hiperplazi, klinik olarak sınırları belirgin, yüzeyden kabarık, nodüler yapıda, sert ve sıklıkla ağrısız bir lezyon olarak tanımlanmaktadır.^{12,14,15} Bizim vakamız da literatürde yer alan olgularla uyumlu klinik görünüme sahip olup başvuru esnasında mevcut olan ağrı şikayetinin üst-alt sabit protezlerin neden olduğu çigneme travması ile ilgili olduğu düşünülmüştür. Yanı sıra, lezyonun üzerini örten mukozanın literatürle uyumlu olarak normal mukoza renginde olduğu gözlenmiştir.^{11,12,14,15} Öte yandan, adenomatoid hiperplazinin kırmızı-mavimsi bir renge sahip olabileceği de belirtilmektedir.⁴

Tablo 1. Literatürde rapor edilen adenomatoid hiperplazi olguları

Yazar	Yıl	Ülke	Lokalizasyon	Cinsiyet	Yaş
Giansati ve ark.	1971	ABD	Damak	K	44
			Sert-yumuşak damak birleşimi	E	24
Arafat ve ark.	1981	ABD	Retromolar bölge	E	55
			Damak	E	33
			Yumuşak damak	E	34
			Damak	E	35
			Sert damak	E	24
			Damak	E	43
			Sert-yumuşak damak birleşimi	E	45
			Yumuşak damak	Belirtilmemiş	Belirtilmemiş
			Yumuşak damak	K	Belirtilmemiş
			Sert damak	K	Belirtilmemiş
Brannon ve ark.	1985	ABD	Retromolar bölge	E	31
Brown ve ark.	1986	ABD	Yumuşak damak	E	22
			Damak	E	31
Buncher ve ark.	1991	ABD	Sert damak x 17	23E	7-79 (± 44.5)
			Yumuşak damak x 10	17K	
			Sert-yumuşak damak birleşimi x 6		
			Retromolar bölge x 2		
			Bukkal mukoza x 2		
			Labial mukoza (üst) x 1		
			Labial mukoza (alt) x 1		
			Dil (ventral) x 1		
Petri III ve ark.	1993	ABD	Damak	E	50
Barrett ve ark.	1995	İngiltere	Sert-yumuşak damak birleşimi	E	47
			Sert damak	K	26
			Sert damak	K	63
			Sert-yumuşak damak birleşimi	K	65
			Sert damak	E	44
			Damak	K	65
			Sert-yumuşak damak birleşimi	E	33
			Sert damak	E	41
			Yumuşak damak	K	39
			Sert damak	E	34
			Sert damak	E	54
			Sert damak	E	36
			Sert-yumuşak damak birleşimi	E	63
			Sert damak	E	35
			Sert-yumuşak damak birleşimi	E	67
			Sert damak	K	67
			Sert-yumuşak damak birleşimi	K	49
			Sert-yumuşak damak birleşimi	E	62
			Sert-yumuşak damak birleşimi	K	60
			Retromolar bölge	E	54
Bryant ve ark.	1996	İngiltere	Damak	E	48
Nozaki ve ark.	1996	Japonya	Sert-yumuşak damak birleşimi	K	13
Chen ve ark.	1999	Çin	Retromolar bölge	E	49
Shimoyama ve ark.	2001	Japonya	Damak	E	31
Sharma ve ark.	2011	Hindistan	Labial mukoza (alt)	E	20
Manor ve ark.	2012	İsrail	Sert damak	K	52
Dereci ve Çimen	2014	Türkiye	Bukkal mukoza	E	48
Patussi ve ark.	2014	Brezilya	Bukkal mukoza	E	12
			Labial mukoza (alt)	K	44
Brea ve ark.	2022	Hindistan	Sert damak	E	Yeni doğan

Palatal bölge, adenomatoid hiperplazi gelişimi açısından en sık rapor edilen anatomik lokasyondur.^{1-3,8,9,11,12,15,16} Bukkal mukoza ise adenomatoid hiperplazinin yerleşimi için nadir bir alan olup sınırlı sayıda olgu raporunda bu

bölgede gelişim bildirilmektedir.^{4,6} Benzer şekilde, retromolar bölge,^{1,3,10,17} labial mukoza^{6,14} ve dil de⁵ adenomatoid hiperplazi gelişimi açısından ender olarak rapor edilen bölgelerdir. Dolayısıyla, bu lokalizasyon-

larda yerleşim gösteren adenomatoid hiperplazi lezyonlarının klinik karakteristiklerinin tam olarak belirlenebilmesi amacıyla daha fazla sayıda olgunun değerlendirildiği çalışmalara ihtiyaç duyulmaktadır.

Adenomatoid hiperplazi lezyonlarının non-spesifik klinik görünümü nedeniyle benzer görünüme sahip nodüler lezyonlardan ayırımının yapılarak kesin tanısının koyulabilmesi için histopatolojik inceleme gereklidir.¹⁴ Histopatolojik kesitlerde sıklıkla hiperplastik tükürük bezi dokusuna eşlik eden normal asiner morfoloji izlenmektedir.^{1,2} Bununla birlikte, kimi olgularda aşırı münle dolu hipertrofik görünümdeki asiner hücreler de rapor edilmiştir.^{1,3} Bizim olgumuzda da literatürle uyumlu olarak normale göre daha şişmiş görünüme sahip münle dolu asiner hücreler saptanmıştır. Adenomatoid hiperplazinin ayırıcı tanısında lipom, fibrom ve mukosel benzeri benign yumuşak doku lezyonları ile birlikte pleomorfik adenom gibi benign tükürük bezi neoplazileri ve mukeoepidermoid karsinom, adenokistik karsinom ve asinik hücreli karsinom gibi malign tükürük bezi neoplazileri de yer almaktadır.^{1,3,4,6} Bu bağlamda, USG'

nin diğer yumuşak doku lezyonlarının ayırıcı tanısında olduğu gibi⁷ adenomatoid hiperplazinin ayırıcı tanısında da yardımcı bir görüntüleme yöntemi olabileceği düşünülmektedir. Bizim olgu raporumuzda, USG ile incelenen minör tükürük bezi kaynaklı adenomatoid hiperplazi düzgün sınırlı, oval şekilli ve anekoik alan içerisinde hiperekoik ve hipoekoik odaklar içeren bir lezyon olarak tanımlanmıştır. Bununla birlikte, mevcut olgu raporları incelendiğinde,^{1-6,8-17} adenomatoid hiperplazi lezyonlarının USG ile değerlendirildiği herhangi bir çalışmaya rastlanmamıştır. Bu anlamda olgu raporumuz literatüre katkı sağlamaktadır.

SONUÇ

Minör tükürük bezi kaynaklı adenomatoid hiperplazinin benzer klinik görünüme sahip diğer nodüler lezyonlar ve tükürük bezi kaynaklı neoplaziler ile karıştırılabileceği ve dolayısıyla gözden kaçabileceği akıld tutularak, bu lezyonların USG ile değerlendirilmesi önem taşımaktadır. Bununla birlikte, kesin tanının koyulabilmesi için histopatolojik incelemenin önemi vurgulanmaktadır.

KAYNAKLAR

1. Barrett AW, Speight PM. Adenomatoid hyperplasia of oral minor salivary glands. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1995; 79: 482-487.
2. Giansanti JS, Baker GO, Waldron CA. Intraoral, mucinous, minor salivary gland lesions presenting clinically as tumors. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1971; 32: 918-922.
3. Arafat A, Brannon RB, Ellis GL. Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1981; 52: 51-55.
4. Dereci O, Cimen E. Adenomatoid hyperplasia of the minor salivary glands on the buccal mucosa: A rare case report. *Int J Surg Case Rep.* 2014; 5: 274-276.
5. Buchner A, Merrell PW, Carpenter WM, Leider AS. Adenomatoid hyperplasia of minor salivary glands. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1991; 71: 583-587.
6. Patussi C, Bixofis RB, Zanferri FL, Zanicotti RT, Sassi LM, Schussel JL. Adenomatoid hyperplasia of minor salivary glands: A report of two cases. *Stomatos Canoas* 2014; 20: 5-11.
7. Ahuja AT. *Diagnostic Ultrasound: Head and Neck.* 2nd ed. Philadelphia, PA: Elsevier - Health Sciences Division; 2021, 147-155.
8. Petri WH, Carr RF, Kahn CS. Adenomatoid hyperplasia of the palate. *J Oral Maxillofac Surg.* 1993; 51: 310-311.
9. Bryant C, Manisali M, Barrett AW. Adenomatoid hyperplasia of palatal minor salivary glands. *J Laryngol Otol.* 1996; 110: 167-169.
10. Chen YK, Lin CC, Lin LM, Yan YH. Adenomatoid hyperplasia in the mandibular retromolar area. Case report. *Aust Dent J.* 1999; 44: 135-136.
11. Nozaki S, Araki A, Nakagawa K, Yamamoto E. Adenomatoid hyperplasia of the palate in an Asian child. *J Oral Maxillofac Surg.* 1996; 54: 627-628.
12. Manor E, Sinelnikov I, Brennan PA, Bodner L. Chromosomal aberrations in adenomatoid hyperplasia of palatal minor salivary gland. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2013; 51: 170-172.
13. Bera RN, Pandey V, Tiwari P. Adenomatous Hyperplasia of Palatal Minor Salivary Gland and Angiolipoma of the Floor of Mouth: The First Documented Case Report in a Neonate. *J Maxillofac Oral Surg.* 2022; 21: 709-714.
14. Sharma GK, Sharma M, Vanaki SS. Adenomatoid hyperplasia of lower lip. *Dent Res J (Isfahan).* 2011; 8: 226-228.
15. Shimoyama T, Wakabayashi M, Kato T, Kaneko T, Horie N, Ide F. Adenomatoid hyperplasia of the palate mimicking clinically as a salivary gland tumor. *J Oral Sci.* 2001; 43: 135-138.
16. Brown FH, Houston GD, Lubow RM, Sagan MA. Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands. Report of two cases. *J Periodontol.* 1987; 58: 125-127.
17. Brannon RB, Houston GD, Meader CL. Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands: a case involving the retromolar area. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1985; 60: 188-190.