

Jüvenil Rekürren Parotit; Nadir Bir Olgu

Yakup Yegin¹, Mustafa Çelik¹, Kamil Hakan Kaya¹, Burak Olgun¹, Fatma Tülin Kayhan¹

ÖZET:

Jüvenil rekürren parotit; Nadir bir olgu

Giriş: Jüvenil rekürren parotit (JRP), çocuklarda görülen parotis bezinin tek veya iki taraflı şişmesiyle karakterize, ataklar şeklinde seyreden, spesifik, tıkaçıcı ve süpüratif olmayan inflamatuvar hastalıdır. Etiyolojisi bilinmemekle beraber otoimmünite, duktal obstrüksiyon, immün yetmezlik ve enfeksiyöz nedenler suçlanmaktadır. Tanısı anamnez, fizik muayene ve radyolojik bulgularla konulur. Birçok tedavi modalitesi önerilmiştir. İlk basamak tedavisi antibiyotikler, analjezikler gibi konservatif tedavidir.

Olgu Sunumu: Bu makalede kliniğimizde tekrarlayan akut parotit nedeniyle takip edilen ve etyolojisi araştırılan 11 yaşında çocuk hasta güncel literatür bilgileri ışığında sunuldu.

Sonuç: JRP tekrarlayan akut parotit bezi şişliklerinin ayırıcı tanısında düşünülmelidir. Nadir etyolojilerin saptanmasında klinik şüphe oldukça önemlidir.

Anahtar kelimeler: Çocuk, jüvenil rekürren parotit, tükürük bezi

ABSTRACT:

Juvenile recurrent parotitis; a rare case

Introduction: Juvenile recurrent parotitis (JRP) is a nonspecific, nonobstructive, nonsuppurative disease that is characterized by intermittent swelling of one or both parotid glands in children. The etiology is unknown but autoimmunity, ductal obstruction, immune deficiency, and infectious causes have all been proposed. The diagnosis is suggested from the history of the disease, the clinical examination and radiological findings. Several treatment modality is proposed. The first line of treatment consists of conservative observation such as antibiotics, analgesics.

Case Report: Herein, we report a 11-years old child patient with recurrent acute parotitis with the evaluation of the etiology of disease and review the relevant literature.

Conclusion: JRP should be considered in the differential diagnosis of patients with acute recurrent parotitis swelling. A high degree of clinical suspicion is needed to determine this rare potential etiology.

Key words: Child, juvenile recurrent parotitis, salivary gland

Ş.E.E.A.H. Tıp Bülteni 2016;50(3):237-40



¹Bakırköy Dr. Sadi Konuk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Kulak Burun Boğaz Baş ve Boyun Cerrahisi Kliniği, İstanbul - Türkiye

Yazışma Adresi / Address reprint requests to: Mustafa Çelik, Bakırköy Dr. Sadi Konuk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Kulak Burun Boğaz Baş ve Boyun Cerrahisi Kliniği, İstanbul - Türkiye

E-posta / E-mail: dr.mcelik@yahoo.com

Geliş tarihi / Date of receipt: 22 Temmuz 2015 / July 22, 2015

Kabul tarihi / Date of acceptance: 11 Ekim 2015 / October 11, 2015

GİRİŞ

Jüvenil rekürren parotit (JRP), çocuklarda görülen parotis bezinin tek veya iki taraflı şişmesiyle karakterize, ataklar şeklinde seyreden, spesifik, tıkaçıcı ve süpüratif olmayan inflamatuvar hastalıdır (1). Çocuklarda parotis bezinin paramiksovirus (kabakulak) enfeksiyonundan sonra en sık görülen ikinci enfeksiyonudur. Kabakulak pediatrik olguların yaklaşık %98'ini oluştururken, JRP insidansı %1.1 ile %1.9 arasında olduğu belirtilmektedir (2,3). Literatürde, kabakulak nedeni olmayan pediatrik parotit ile ilgili sadece 69 makale bulunmaktadır (1985-2015). Gün-

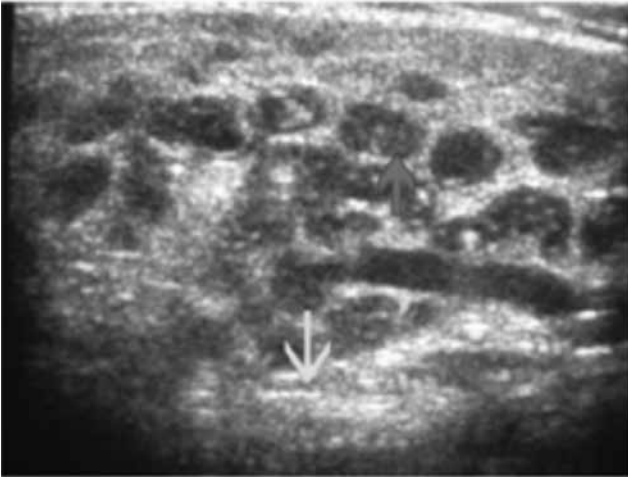
cel literatür bilgileri göstermektedir ki nadir görülen bir hastalık olması çocuklarda parotit ayırıcı tanısında mutlaka düşünülmesi gereklidir. Bununla birlikte, nadir görülmesinden dolayı da tanısı genellikle geç konulmaktadır (1). Bu makalede 11 yaşındaki rekürren parotit olgusunun tanı, tedavi ve takip aşamaları güncel literatür bilgileri ışığında sunuldu.

OLGU SUNUMU

11 yaşında erkek hasta, son üç gündür sağ parotis lojunda şişlik, kızarıklık, ağrı nedeniyle kliniğimize başvurdu. Daha önceden benzer şikayetleri nedeniy-



Resim-1: Sağ parotis bezinde şişlik (akut atak tedavisinin 5.günü; hiperemi ve ısı artışı gerilemiş ancak şişlik devam ediyor).



Resim-2: USG görüntüsü; sağ parotis bezinde çok sayıda hipoeoik alanlar (kırmızı ok), hiperekojen kalsifikasyonlar (yeşil ok).⁷

le kabakulak tanısı aldığı ancak şikayetlerinin tedavisiyle azalmasına rağmen yılda beşten fazla tekrarladığı anamnezi alındı. Her atak sırasında aynı bölgenin etkilendiği ve ağız, göz kuruluğu, cilt döküntüsü, eklem ağrısı gibi sistemik bir semptomun eşlik etmediği ailesinden öğrenildi. Bilinen bir ilaç ve besin

alerjisi olmayan hastanın fizik muayenesinde sağ parotis lojunda 3x2 cm boyutlu sert, fikse, ağrılı, yüzeyi kızarıklık kitle saptandı (Resim-1). Diğer kulak burun boğaz ve sistemik muayenesinde özellik yoktu. Laboratuvar incelemesinde lökosit sayısı 14,750/mm³ (%85 nötrofil hakimiyeti mevcut), eritrosit sedimentasyon hızı 39 mm/saat, türbidimetrik C-reaktif proteini (CRP) 3.6 mg/dl idi. Diğer biyokimyasal tetkikleri normal sınırlardaydı. Boyun ultrasonografisinde (USG) sağ parotisin sola göre daha büyük boyutlarda, sağ parotis bezinde çok sayıda hipoeoik alanlar, hiperekojen kalsifikasyonlar ve Stenon kanalının sola göre daha geniş olup obstrüksiyon bulgusunun olmadığı saptandı (Resim-2). Akut parotit nedeniyle hastaya amoksisilin-klavulanat (40 mg/kg/gün) ve analjezik tedavisi iki hafta süreyle verilip hasta tekrarlayan parotit etyolojisine yönelik araştırılmaya alındı. İmmün yetmezlik araştırılmasında immüno-globülinler yaşa göre normal sınırlarda, romatoid faktör (RF), antinökleer antikor, anti-deoksiribonükleik asit, anti-SSA, anti-SSB antikorları negatif olarak saptandı. Göz kuruluğu ve otoimmün üveit ekartasyonu için yapılan göz kliniği konsültasyonunda göz muayenesi normal olarak belirtildi. Sjögren sendromu ekartasyonu açısından lokal anestezi altında bukkal tükürük bezi biyopsisi yapıldı ve patolojik inceleme sonucu normal olarak rapor edildi. Radyasyonun yan etkileri düşünülerek hastaya bilgisayarlı tomografi (BT) çekilmedi. Kliniğimizde siyaloendoskopi ünitesi olmadığından siyaloendoskopik inceleme yapılamadı. Hasta kliniğimizde JRP tanısıyla takip altına alındı ve 1 yıllık takipte şikayetlerinin yedi kez tekrarladığı ve her defasında iki hafta içinde semptomatik tedavinin ardından gerilediği görüldü. Hastaya Stensen kanalının bağlanması, timpanik nörektomi, süperfişyal ve total parotidektomi operasyonu riskleri anlatılarak önerildi ancak aile cerrahi müdahale istemediğini belirtti.

Aydınlatılmış onam: Bu makalede yer alan hastanın ailesinden aydınlatılmış onam ve yayın için izin alınmıştır.

TARTIŞMA

JRP, ataklarla seyreden tek veya iki taraflı parotis bezinin şişmesiyle karakterize inflamatuvar bir hasta-

lıktır (1). Genellikle kendi kendini sınırlayan bir hastalık olup tanı daha çok 3-6 yaşları arasında zirve yapmaktadır (4). Hastalık erkek cinsiyette daha sık görülmekteyken, puberte sonrası dönemde kız hakimiyeti ortaya çıkmaktadır (5). Atak sıklığı değişken olup yılda ondan fazla atak görülen olgular rapor edilmiştir (1,3). Ataklar arası dönemde çocuklar genellikle asemptomatiktir ve ataklar arası dönem hastadan hastaya farklılık göstermektedir (6).

Hastalık çoğu olguda unilateraldir (%66) ancak bilateral olgular da rapor edilmiştir (1,4). Bilateral olduğunda ise bir tarafta semptomlar daha baskın olarak klinik vermektedir (1). Semptomlar etkilenen tarafta ağrı, ödem, kızarıklık ve ısı artışı şeklinde olup genellikle sistemik ateş yüksekliği de eşlik eder (3). İlk atak tipik olarak bir-iki yaşlarında meydana gelir ancak sıklıkla kabakulak, otit veya farenjit gibi yanlış tanıları nedeniyle tanısı gecikmektedir (1). Bununla birlikte, normalden daha büyük parotis bezinin tekrarlayan enfeksiyonları JRP ile karışabilmektedir. Ayırıcı tanısında Godwin's benign lenfoepitelyal lezyonları, sialadenosis, tüberküloz, sarkoidoz, pnömoparotis, kronik punktat siyaloektazi, Mikulicz hastalığı ve Sjögren sendromu düşünülmelidir (1,2).

JRP'in etyolojisi tam olarak bilinmemektedir ancak bazı faktörlerin etyolojide rol oynayabileceği öne sürülmüştür (3,5). Konjenital malformasyonlar, genetik, primer veya sekonder enfeksiyonlar, alerji, sistemik immünolojik hastalıklar ve maloklüzyon suçlanan faktörlerdir (1,3,6). Reid ve ark. (7) rekürren parotit görülen bir ailede yaptıkları genetik çalışmada JRP in otozomal dominant özelliğe sahip bir hastalık olduğunu bildirmiştir. Fazekas ve ark. (8) selektif IgA yetmezliğinin sağlıklı çocuklara göre JRP'li çocuklarda daha sık görüldüğünü bildirmiştir. Sistemik ve lokal immün yetmezliğin etyopatogeneizde rol oynayabileceği öne sürülmüştür (1,5). Ayrıca JRP'in Sjögren sendromunun çocuklarda ilk belirtisi olabileceği belirtilmiştir (9). Alerji de etyopatogeneizde suçlanan ancak kanıtlanamayan bir faktördür (1). Bu olguda yapılan USG'de konjenital malformasyon, duktal obstrüksiyon bulgusuna rastlanmadı, yapılan tetkiklerde immünolojik testlerde immün yetmezlik saptanmadı ve hastanın bilinen bir alerjisi anamnezi yoktu. Literatürde farklı teoriler öne sürülmüş olsa da günümüzde hakim olan görüş multifaktöriyel bir has-

talık olduğudur (1,5). Bununla birlikte, hastalığın esas nedeni oral kavitedeki enfeksiyöz ajanların asendan olarak tükürük bezlerine ilerlemesi, duktal sistemde yetersiz tükürük salgısına neden olup tükürük üretimini azaltması olarak düşünülmektedir (1). Duktal sistemin parsiyel tıkanıklığı retansiyon ve duktal genişleme ile sonuçlanır. Oluşan siyaloektazi bundan sonra tekrarlayan enfeksiyonlara zemin hazırlamış olur (1).

JRP tanısı genellikle üçüncü dördüncü ataktan sonra anamnez, fizik muayene ve görüntüleme yöntemleri ile konulmaktadır (2,3). Ataklar arası dönem değişken olup 15 günden iki aya kadar değişebilmektedir. Atak sıklığı aynı zamanda hastalığın şiddetini belirleyen önemli bir faktördür. Ancak hastalığın gerçek şiddeti bezin fonksiyonlarını %50'den fazla azaltan irreverzibl parenkim hasarının progresyon göstermesidir (1). Parotisin diğer patolojilerinin aksine ince iğne aspirasyon biyopsisinin (İİAB) tanıda yeri yoktur. JRP olgularında gereksiz İİAB genellikle parotis patolojilerinin ayırıcı tanıda akla gelmediği durumlarda yapılmaktadır (6). Görüntüleme yöntemi olarak daha çok USG kullanılırken, BT, manyetik rezonans görüntüleme (MR), siyalogram ve MR siyalografi de kullanılabilir radyolojik tetkiklerdir (10,11). Siyalendoskopi de son zamanlarda hem tanı hem de tedavi amaçlı kullanılan bir radyolojik tetkiktir (11). USG'de parotis bezinde hipoekoik alanlar, gölcükler, duktal dilatasyon ve geniş açık ostium saptanır (1). Bu olguda radyasyon yan etkileri göz önüne alınarak BT çekilmedi. Hasta USG ile takip edildi. Hastamızın USG bulguları JRP ile uyumlu idi.

JRP tedavi modaliteleri konservatif tedavi yaklaşımından invazif cerrahi işlemlere kadar değişmektedir. Birçok yazar atak sırasında antibiyotik kullanmazken, profilaktik antibiyotik kullanımının da progresyona etkisinin olmadığı bildirilmiştir (4,6). Bununla birlikte Cohen ve ark. (12) IgA eksikliği saptanan çocuklarda uzun dönem düşük doz profilaktik antibiyoterapinin kullanılması gerektiğini belirtmiştir. İlk basamak tedavi olarak antibiyoterapi, sıvı alımı, ağız bakımı, sakız çiğneme, siyalogog ajanlar önerilmektedir (1,4,6). Kliniğin daha ağır olduğu olgularda Stensen kanalının bağlanması, timpanik nörektomi, süperfisiyal veya total parotidektomi tedavi seçeneğini oluşturmaktadır (10,11). Stensen kanalının bağlan-

ması, sekretuar asiner hücrelerde basınca bağlı atrofi meydana getirir. Bununla birlikte, sık siyalosel ve abse gelişimi meydana gelmesinden dolayı nadiren uygulanmaktadır. Asiner hücrelerde atrofi meydana getiren başka bir yöntem olan timpanik nörektomi sonuçlarının iyi olmaması, timpanik nörektomi uygulamasının sınırlı kalmasına neden olmuştur (4,6). Parotidektomi JRP için son tedavi seçeneği olarak düşünülmekle beraber, total parotidektomi ile semptomların tamamen gerilediği ancak süperfişiyal parotidektomi ile semptomların tamamen gerilemediği bildirilmiştir (11). Literatürde total parotidektomi ve süperfişiyal parotidektominin JRP tedavisindeki başarı oranı hakkında net bir çalışma olmamakla birlikte, Moody ve ark. (13), Orvidas ve ark. (14) ve Laskawi ve ark. (15) tarafından parotis bezinin tamamen eksize edilmesi ile şikayetlerin tamamen gerileyeceği ifade edilmiştir (11). Siyalografide intraduktal enjekte edilen iyot, kortizon ve metil viyole gibi maddelerle lavaj yapılmaktadır. Katz ve ark. (1) JRP olgularında iyotlu siyalografi ile semptomların bir yıllık takip süresince gerilediği ve tekrarlamadığı rapor edilmiştir. Siyaloendoskopi lokal veya genel anestezi altın-

da, semi-rijit mini endoskop kullanılarak yapılan yeni bir yöntemdir. Minimal invazif, güvenli ve etkin bir yöntemdir. Siyaloendoskopide en sık saptanan patoloji kanal mukozasının beyaz ve avasküler görünmesidir (5,10). Siyaloendoskopinin JRP tedavisindeki yeri mukozal debrislerin kortikosteroid gibi bir sıvı ile yıkanması ve darlıkların açılmasıdır (5). Siyalografi ve siyaloendoskopi son zamanlarda öne çıkan yeni tedavi seçenekleri olmasına rağmen uzun dönem sonuçları hakkında yeterli çalışma bulunmamaktadır.

JRP'nin premalign bir hastalık olup olmadığı hakkında herhangi bir literatür bilgisi bulunmamaktadır. Uzun dönem takip bu karanlık noktanın aydınlanmasını sağlayacaktır.

SONUÇ

JRP, çocukluk çağında nadir görülmekle birlikte tekrarlayan akut parotit kliniğinde ayırıcı tanıda düşünülmelidir. Hastaların takip altına alınması, hastalık hakkında daha çok deneyim kazanmamızı sağlayacaktır.

KAYNAKLAR

1. Katz P, Hartl DM, Guerre A. Treatment of juvenile recurrent parotitis. *Otolaryngol Clin N Am* 2009; 42: 1087-91. [CrossRef]
2. Nahielli O, Bar T, Shacham R, Eliav E, Hecht-Nakar L. Management of chronic recurrent parotitis: current therapy. *J Oral Maxillofac Surg* 2004; 62: 1150-5. [CrossRef]
3. Quenin S, Plouin-Gaudon I, Marchal F, Froehlich P, Disant F, Faure F. Juvenile recurrent parotitis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2008; 134: 715-9. [CrossRef]
4. Roby BB, Mattingly J, Jensen EL, Gao D, Chan KH. Treatment of juvenile recurrent parotitis of childhood. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2015; 141: 126-9. [CrossRef]
5. Ramakrishna J, Strychowsky J, Gupta M, Sommer DD. Sialendoscopy for the management of juvenile recurrent parotitis: A systematic review and meta-analysis. *Laryngoscope* 2015; 125: 1472-9. [CrossRef]
6. Capaccio P, Sigismund PE, Luca N, Marchisio P, Pignataro L. Modern management of juvenile recurrent parotitis. *J Laryngol Otol*. 2012; 126: 1254-60. [CrossRef]
7. Reid E, Douglas F, Crow Y, Hollman A, Gibson J. Autosomal dominant juvenile recurrent parotitis. *J Med Genet* 1998; 35: 417-9. [CrossRef]
8. Fazekas T, Wiesbauer P, Schroth B, Pötschger U, Gadner H, Heitger A. Selective IgA deficiency in children with recurrent parotitis of childhood. *Pediatr Infect Dis J* 2005; 24: 461-2. [CrossRef]
9. Shkalim V, Monselise Y, Mosseri R, Finkelstein Y, Garty BZ. Recurrent parotitis in selective IgA deficiency. *Pediatr Allergy Immunol* 2004; 15: 281-3. [CrossRef]
10. Gadodia A, Seith A, Sharma R, Thakar A. MRI and MR sialography of juvenile recurrent parotitis. *Pediatr Radiol* 2010; 40: 1405-10. [CrossRef]
11. Mikolajczak S, Meyer MF, Beutner D, Luers JC. Treatment of chronic recurrent juvenile parotitis using sialoendoscopy. *Acta Otolaryngol* 2014; 134: 531-5. [CrossRef]
12. Cohen HA, Gross S, Nussinovitch M, Frydman M, Varsano I. Recurrent parotitis. *Arch Dis Child* 1992; 67: 1036-7. [CrossRef]
13. Moody AB, Avery CM, Walsh S, Sneddon K, Langdon JD. Surgical management of chronic parotid disease. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2000; 38: 620-2. [CrossRef]
14. Orvidas LJ, Kasperbauer JL, Lewis JE, Olsen KD, Lesnick TG. Pediatric parotid masses. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2000; 126: 177-84. [CrossRef]
15. Laskawi R, Schaffranietz F, Arglebe C, Ellies M. Inflammatory diseases of the salivary glands in infants and adolescents. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2006; 70: 129-36. [CrossRef]