

Abstract

Nekrotiserende sialometaplasi kan misfortolkes

Nekrotiserende sialometaplasi (NS) er en benign, selvbegrænsende inflammatorisk tilstand, der hyppigst afficerer de små spytkirtler. Ætiologien inkluderer sandsynligvis lokale, vaskulære forandringer, der forårsager iskæmi og medfører nekrose af de små spytkirtler. Både det kliniske og histologiske billede kan misfortolkes som værende malignt, og vi præsenterer vores kasuistik for at henlede opmærksomheden på denne tilstand og for at undgå unødvendige, omfattende kirurgiske indgreb.

Emneord:
Sialometaplasia,
necrotizing;
neoplasms,
malignant;
differential
diagnosis;
treatment

Nekrotiserende sialometaplasi

Lene Helsted, tandlæge, uddannelsestandlæge i Tand-, Mund- og Kæbekirurgi, Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Klinik, Rigshospitalet

Morten Schiødt, klinikchef, specialtandlæge, dr.odont., Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Klinik, Rigshospitalet

Nekrotiserende sialometaplasi (NS) er en selv-begrænsende, benign, inflammatorisk proces, der oftest involverer de små spytkirtler. Tilstanden blev første gang beskrevet i 1973 af Abrams et al. (1), og året efter fulgte rapportering af lignende tilfælde af Dunlap og Barker (2). Tilstanden er interessant, fordi den klinisk og histologisk har malignt udseende. En korrekt stillet diagnose er derfor essentiel for at undgå ekstensiv kirurgi af en benign læsion (3).

NS ses hyppigst i den hårde gane eller på grænsen mellem den hårde og bløde gane (4), men kan ses alle steder, hvor der er spytkirtelvæv (2,5).

Klinisk kan tilstanden præsentere sig med feber, utilpashed, hævelse og evt. smerter. Paræstesi eller anæstesi af det involverede område er desuden rapporteret (2,6), men kun omkring halvdelen af tilfældene af NS er smertefulde (5). Intraoralt ses en velafgrænset ulceration, oftest i den hårde gane med let eleverede, irregulære kanter og nekrotisk væv, der kan gå ned til den underliggende knogle, ca. 1-3 cm i diameter (1). Tilfældene er hyppigst unilaterale, men de kan også optræde bilateralt (7).

Ætiologien omfatter iskæmi, der kan være opstået efter lokalt traume, rygning, kirurgisk indgreb, intubationsskade eller injektion med lokal analgesi (5,8,9). Dette medfører en hævelse i området med nedsat blodtilførsel, hvorefter der opstår iskæmisk nekrose, ulceration, metaplastisk reaktion og fibrotisk arvævsdannelse (8). Der er fundet flest tilfælde hos kaukasere, mænd afficeres hyppigere end kvinder (2:1), og tilstanden ses oftest hos midaldrende (5). Bulimikere udgør dog også en gruppe, der synes at blive ramt hyppigere end andre (3), og en non-helende ulceration hos unge patienter med tegn på bulimi vil derfor oftest afsløres som NS frem for pladeepitelkarcinom, der er meget sjældent hos unge patienter (4).

Histologisk ses lobulær nekrose af det underliggende spytkirtelvæv, mens den lobulære arkitektur i den involverede kirtel er bevaret. Der forekommer endvidere pladeepitelmetaplasi af udførselsgangene, som giver anledning til en såkaldt pseudokarcinomatøs hyperplasi, der overfladisk kan ligne et planocellulært karcinom, men de metaplastiske celler har benign kernemorfologi. Der er varierende grad af inflammation (1,10).

Differentialdiagnostisk må man overveje andre tilstande, der kan give forandringer i ganen, fx mukoeppidermoidt karcinom, planocellulært karcinom, pleomorft adenom med ulceration eller subakut nekrotiserende sialometaplasi (SANS). SANS kan være en tidlig eller mildere form af NS, der klinisk præsenterer sig som en nodulær forandring uden tydelig ulceration, men med kraftig smerte. Ofte ses SANS hos yngre patienter. Histologisk ses der ikke pladeepitelmetaplasi eller pseudokarcinomatøs hyperplasi (11,12). Tilstanden er hyppigst rapporteret hos unge mænd, der lever tæt sammen, såsom i militærbarakker (11), og tilstanden heles oftest af sig selv i løbet af 2-3 uger (11,12), hvorimod NS heles sekundært i løbet af 3-12 uger (5). Helingsprocessens varighed afhænger af læsionens størrelse (9).

Diagnostiske procedurer bør ud over en klinisk undersøgelse omfatte en grundig anamnese, inklusive oplysning om tidligere traumer/lokal behandling i regionen, medicinstatus, oplysninger om tobaks- og alkoholvaner, mundhygiejne, evt. proteser og brug af disse samt endelig oplysning om orale "vaner", der måske kunne have forårsaget læsionen. Røntgenbilleder kan udelukke andre abnorme tilstande i regionen. Diagnosen stilles efter undersøgelse af en biopsi, der kan foretages i lokalbedøvelse. Der skal endvidere instrueres i god mundhygiejne, såfremt dette er nødvendigt, og er patienten ryger, opfordres der til rygestop. Behandling med antibiotika og steroider har ingen effekt (7). Der er ikke behov for yderligere behandling, idet læsionen normalt heles spontant. Tilstanden kontrolleres, indtil der er sket en komplet opheling, oftest i løbet af 3-12 uger (5,13). Læsioner, der ikke viser tegn på heling, skal revurderes inkluderende ny biopsi (4).

KLINISK RELEVANS

For det kliniske forløb er det helt essentielt at have kendskab til diagnosen og behandlingen af nekrotiserende sialometaplasi. NS er nemlig en sjælden benign tilstand, der ved præsentation kan ligne en malign tumor. For at stille den korrekte diagnose og undgå unødvendige og omfattende kirurgiske indgreb er en histologisk undersøgelse nødvendig. Det anbefales også, at tandlægen henviser patienter med de beskrevne forandringer til en kæbekirurgisk afdeling, der kan undersøge og behandle patienten.

Patientkasuistik

En 69-årig mand henvises fra egen tandlæge til Kæbekirurgisk Afdeling, Glostrup Hospital (hører nu til Rigshospitalet, Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Klinik) for en defekt i ganen regio +6 opstået ca. tre uger tidligere.

Patienten var i behandling med Hjertemagnyl 75 mg daglig, Marevan efter skema, Digoxin 0,62 mg daglig og Furix 40 mg daglig. Patienten havde tidligere røget 50 cigaretter dagligt igennem 20 år, men røg nu ca. 20 cigaretter dagligt. Der var intet dagligt alkoholforbrug, og der var ingen kendte allergier.

Subjektivt var der ingen væsentlige smerter fra cavum oris, men patienten havde en måned tidligere, i forbindelse med

Klinik – før biopsi



Fig. 1. Nekrotiserende sialometaplasi i ganen hos 69-årig mand ved præsentation. Der ses ulceration til underliggende knogle og nekrotisk væv.

Fig. 1. Necrotizing sialometaplasia of the palate in a 69-year-old man. Ulceration with exposed underlying bone and necrotic tissue is observed.

Klinik – 11 dage efter biopsi



Fig. 2. Klinisk præsentation 11 dage efter biopsi af nekrotiserende sialometaplasi. Begyndende sekundær heling ses.

Fig. 2. Clinical presentation 11 days post biopsy of necrotizing sialometaplasia. Healing by secondary intention is observed.



påbegyndt behandling med Furix, gennem en uges tid haft mavesmerter og gentagne episoder af epitaxis, hvor der opstod en uvane med at suge blodet ind i munden. Patienten mente selv, at der dannede sig en boble, der sprang, hvorefter defekten i regio +6 opstod. Der havde ikke tidligere været lignende symptomer, og patienten havde ikke tidligere været intuberet eller opereret i mundhulen.

Klinisk undersøgelse viste næsten fuld betanding med rimelig

mundhygiejne og habituel okklusion. I ganen regio +6 sås en 12 x 12 mm stor kraterlignende ulceration med defekt til underliggende knogle. I periferien sås et område med let hvidlig overflade (Fig. 1). Der blev ikke foretaget radiologisk undersøgelse. Patienten blev opfordret til rygestop, og der blev foretaget biopsi i lokalanalgesi.

Det histologiske billede var foreneligt med nekrotiserende sialometaplasi, idet der sås pladeepitelbeklædt slimhinde med

Histologi

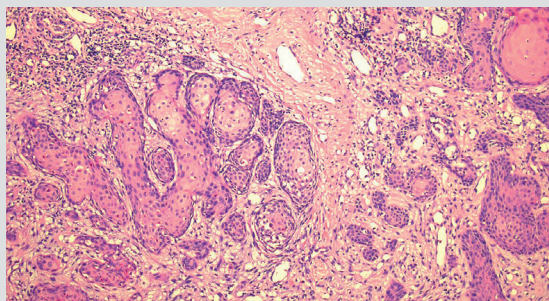


Fig. 3. Histologisk snit af nekrotiserende sialometaplasi, H&E farvning. Der ses pseudoepitheliomatøs epitelhyperplasi, pladeepitelmetaplasi og kronisk inflammation.

Fig. 3. Histology of necrotizing sialometaplasia, H&E staining. Pseudoepitheliomatous epithelial hyperplasia, squamous epithelial metaplasia and chronic inflammation are observed.

Histologi

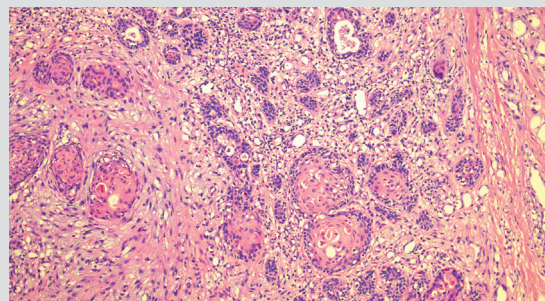


Fig. 4. Histologisk snit, H&E farvning. Udførselsgange med begyndende metaplasi og øer af pladeepitel i bindevævet ses.

Fig. 4. Histology, H&E staining. Ducts with initial metaplasia and islands of squamous epithelium are seen in the connective tissue.

Klinik - 5½ uge efter biopsi



Fig. 5. Klinisk præsentation 5 ½ uge efter biopsi af nekrotiserende sialometaplasi. Yderligere healing ses.

Fig. 5. Clinical presentation 5 ½ weeks post biopsy of necrotizing sialometaplasia. Further healing is observed.

Klinik - healing

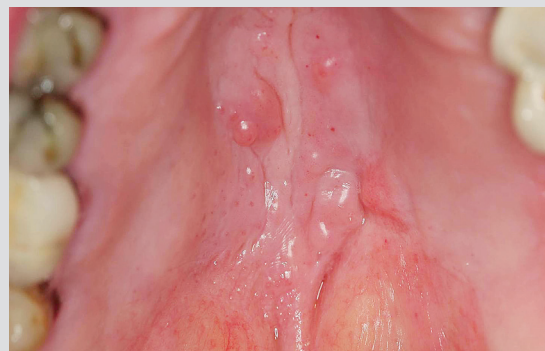


Fig. 6. Klinisk præsentation seks måneder efter biopsi. Fuldstændig healing ses.

Fig. 6. Clinical presentation 6 months post biopsy. Complete healing is observed.

pseudokarcinomatøs epitelhyperplasi. I bindevævet optrådte flere kirteludførsels gange med pladeepitelmetaplasi og reaktive kerneforandringer, let kronisk inflammation og rester fra små spytkirtler observeredes profund (Fig. 3 og 4).

Patienten blev fulgt klinisk, og opheling skete uden yderligere behandling i løbet af syv uger (Fig. 2, 5 og 6).

Konklusion og anbefaling til privatpraktiserende tandlæger

NS er en sjælden, benign tilstand, der både klinisk og histologisk kan have malignt udseende. Det er derfor vigtigt at kende tilstanden som differentialdiagnose til en ulcereret forandring i ganen. En histologisk undersøgelse er nødvendig for at stille den korrekte diagnose og undgå ekstensiv kirurgi af en benign læsion. Grundet tilstandens maligne udseende anbefales det at henvise patienter med de beskrevne forandringer til en Kæbekirurgisk Afdeling med henblik på undersøgelse og behandling.

Taksigelse

Overlæge Per Ibsen, Patologiafdelingen, Herlev Hospital takkes for assistance med de histologiske snit. ■

Abstract (English)

Necrotizing sialometaplasia

Necrotizing sialometaplasia (NS) is a benign, self-limiting inflammatory disease, mainly affecting the minor salivary glands. The aetiology probably includes local vascular changes, which causes ischemia, leading to infarction of the minor salivary glands and necrosis. The clinical and histological appearance mimics malignancy and we present one case study to draw attention to this disease and to prevent unnecessary, radical surgery.

Litteratur

- Abrams AM, Melrose RJ, Howell FV. Necrotizing sialometaplasia, a disease simulating malignancy. *Cancer* 1973; 32: 130-5.
- Dunlap CL, Barker BF. Necrotizing sialometaplasia. Report of five additional cases. *Oral Surg. Oral Med Oral Pathol* 1974, 37: 722-7.
- Solomon LW, Merzianu M, Sullivan M, Rigual NR. Necrotizing sialometaplasia associated with bulimia: case report and literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol. Endod* 2007; 103: e39-42.
- Carlson DL. Necrotizing sialometaplasia: a practical approach to the diagnosis. *Arch Pathol. Lab Med* 2009; 133: 692-8.
- Brannon RB, Fowler CB, Hartman KS. Necrotizing sialometaplasia. A clinicopathologic study of sixty-nine cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72: 317-25.
- Lamey PJ, Lewis MAO, Crawford DJ, MacDonald DG. Necrotising sialometaplasia presenting as greater palatine nerve anaesthesia. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1989; 18: 70-2.
- Keogh PV, O'Regan E, Toner M, Flint S. Necrotizing sialometaplasia: an unusual bilateral presentation associated with antecedent anaesthesia and lack of response to intralesional steroids. Case report and review of the literature. *Br Dent J* 2004; 196: 79-81.
- Grillon GL, Lally ET. Necrotizing sialometaplasia: literature review and presentation of five cases. *J Oral Surg* 1981; 39: 747-53.
- Imbery TA, Edwards PA. Necrotizing sialometaplasia: literature review and case reports. *J Am Dent Assoc* 1996; 127: 1087-92.
- Suckiel JM, Davis WH, Patakas BM, Kaminishi RM. Early and late manifestations of necrotizing sialometaplasia. *J Oral Surg* 1978; 36: 902-5.
- Werning JT, Waterhouse JP, Mooney JW. Subacute necrotizing sialadenitis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1990; 70: 756-9.
- Lombardi T, Samson J, Küffer R. Subacute Necrotizing sialadenitis: a form of necrotizing sialometaplasia? *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2003; 129: 972-5.
- Fowler CB, Brannon RB. Subacute necrotizing sialadenitis: report of 7 cases and a review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 2000; 89: 600-9.