

Olgu sunumu:

Kanaliküler adenom*

Muhammed Emin Güldür¹, Muharrem Bitiren¹, İlyas Özardalı¹, İmran Şan², İsmail İyneren²,
M. Hüseyin Metineren¹

Harran Üniversitesi Tıp Fakültesi ¹Patoloji ve ²Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalları, Şanlıurfa

Amaç: Kanaliküler adenoma, minör tükürük bezlerinden köken alan ve nadir görülen benign bir tümördür. Kadınlarda erkeklere oranla daha sık rastlanır. Lezyon, genelde üst dudakta ağrısız kitle şeklinde ortaya çıkar. Olguların bir kısmı makroskopik ya da mikroskopik multifokaldir. **Olgu sunumu:** Çalışmamızda sol üst dudak mukozasında 7 aydır gelişen ağrısız kitlesi olan 56 yaşındaki bayan hasta sunuldu. **Sonuç:** Histopatolojik incelemede multifokal özelliğe sahip minör tükürük bezi kanaliküler adenomu tanısı alan olgumuz; klinikopatolojik ve immünohistokimyasal özellikleri ile literatür bilgileri eşliğinde tartışıldı.

Anahtar kelimeler: Kanaliküler adenoma, minör tükürük bezleri, üst dudak

Canalicular adenoma

Objective: The canalicular adenoma is an uncommon benign tumor deriving from the minor salivary glands. It is more common in females than in males. The lesion usually occurs as a painless mass in upper lip. Some cases are macroscopically or microscopically multifocal. **Case report:** In our study, we present a 56 years old female patient with a mass growing painlessly for 7 months in the upper lip mucosa. **Conclusion:** Our case, diagnosed as minor salivary gland canalicular adenoma on histopathological examination, was discussed in terms of clinicopathologic and immunohistochemical features in the light of the literature.

Key words: Canalicular adenoma, minor salivary glands, upper lip

Genel Tıp Derg 2010;20(4):143-146

Kanaliküler adenom, büyük çoğunluğu ağız içerisindeki minör tükürük bezlerinden gelişen benign bir tümördür. Tüm tükürük bezi tümörlerinin % 1'ini oluşturur (1). Bu tümörlerin yaklaşık % 70-90'ı üst dudakta lokalizedir. Genellikle 50 yaş üzerinde ortaya çıkar ve kadınlarda daha sık görülme eğilimindedir (2,3). Klinik olarak submukozada 2 cm'yi geçmeyen kitleler oluşturur. Bazı olgularda, diğer ağız içi tükürük bezi tümörlerinin aksine, multifokal odaklar görülür. Cerrahi rezeksiyondan sonra kalan mikroskopik odakların rekürrenslere neden olduğu düşünülmektedir (2). Bu çalışmada, çok az görülen kanaliküler adenom, ilginç bulunarak ilgili kaynakların ışığında sunulmuştur.

*Bu çalışma 7-11 Ekim 2009 tarihleri arasında düzenlenen 19. Ulusal Patoloji Kongresinde poster olarak sunulmuştur.

Yazışma adresi: Doç.Dr.Muhammed Emin Güldür, Harran Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji Anabilim Dalı, Şanlıurfa

e-posta: sevimemin@mynet.com

Olgu sunumu

Elli altı yaşında kadın hasta, 7 aydır sol üst dudak iç kısmında yavaş büyüyen, ağrısız şişlik yakınması ile Harran Üniversitesi Tıp Fakültesi Hastanesi KBB Polikliniği'ne başvurdu. Fizik muayenesinde sol üst dudakta submukozal yerleşimli üzerinde mukozal hiperemi ve ülserasyon göstermeyen 1,5 cm. çapında yüzeysel kabarıklık mobil kitle tespit edildi. Tanı ve tedavi amacıyla lezyon total olarak çıkarıldı. Materyal % 10'luk formaline konularak histolojik inceleme amacıyla patoloji laboratuvarına gönderildi. Makroskopik incelemede lezyonun düzgün yüzeysel, kapsüllü, 1.5 cm uzun çapta ve elastik kıvamlı olduğu saptandı. Kesit yüzeyi ise solid ve gri-beyaz renkteydi. Materyalin tamamı histopatolojik inceleme için takibe alındı.

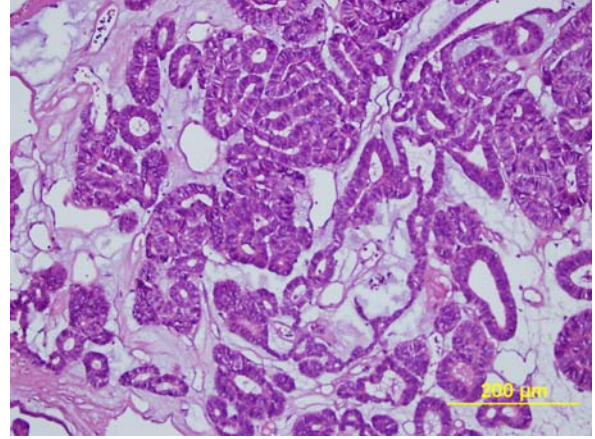
Mikroskopik incelemede geniş alanlarda tümör dokusu izlenmekteydi. İnce fibröz bir kapsülle çevrelenmiş olan tümör dokusu, oval-küboidal

nükleuslu, nükleus konturları düzenli, atipik mitoz içermeyen geniş eozinofilik sitoplazmalı epitelyal hücrelerden oluşmaktaydı. Bu hücrelerin çoğu çift sıra halinde dizilerek bazen birbirleri ile anastomozlaşan küçük kanal yapıları oluşturmaktaydı. Aradaki stromada az sayıda fibroblast ve çok sayıda damarlar görüldü (Şekil 1). Kapsül içinde ve yer yer kapsül dışında yukarıda tanımlanan tümöral yapı ile aynı histolojik özellikte çok sayıda mikroskopik odaklar saptandı (Şekil 2,3). Ayrıca kapsül dışında küçük odaklar halinde lenfoplazmasiter iltihabi hücreler içeren minör tükrük bezi odakları ve çizgili kas demetleri de gözlemlendi. Yapılan immünohistokimyasal boyalardan sitokeratin 19 (1/10, monoclonal antibody, Progen, Heidelberg) (Şekil 4) ve S-100 (1/200 monoclonal antibody, Dako, CA) pozitif, sitokeratin 7 (1/20, monoclonal antibody, Progen, Heidelberg) fokal pozitif, ayrıca düz kas aktini (1/50, monoclonal antibody, Oncogene Research Products, CA), vimentin (1/20, monoclonal antibody, Dako, CA) ve GFAP (1/100 monoclonal antibody, Dako, CA) ile de boyanma gözlenmedi. Bu histopatolojik ve klinik bulgular eşliğinde olgu multifokal özellikli kanaliküler adenom olarak değerlendirildi. Postoperatif dönemde 1 yıllık izleme sürecinde nüks saptanmadı.

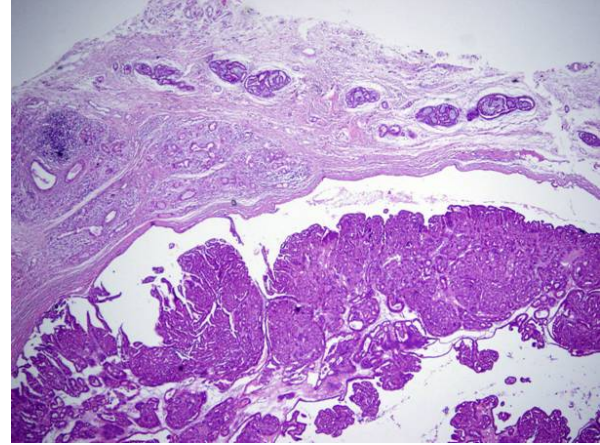
Tartışma

Kanaliküler adenomlar nadir görülen benign tümörler olup, bütün tükrük bezi tümörlerinin % 1'ini oluşturur (1). İntraoral minör tükrük bezi tümörleri ile ilgili yapılan değişik çalışmalarda, kanaliküler adenomaların benign minör tükrük bezi tümörleri arasında pleomorfik adenomdan sonra ikinci ya da üçüncü sıklıkla görüldüğü izlenmiştir (4-6). En sık lokalize olduğu anatomik bölge % 70-90 oranında üst dudaktır. Daha az olarak da yanak mukozası ve damakta gözlenir (1-3).

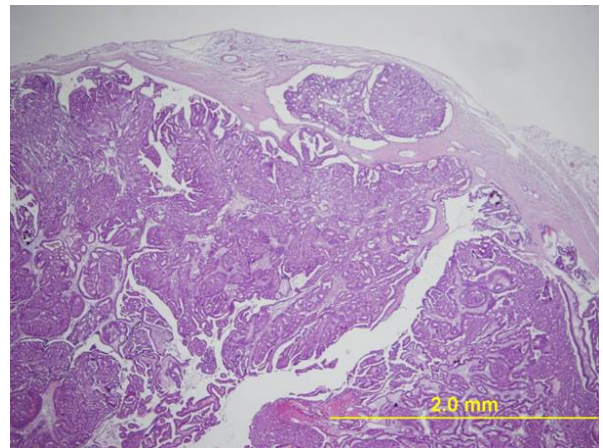
Kanaliküler adenomların görülme sıklığı 6. dekatta yoğunlaşmaktadır. Klinik olarak ağrısız, yavaş büyüyen, elastik kıvamlı, genellikle 2 cm'den küçük submukozal kitleler oluşturur (2,3). Bizim olgumuz 56 yaşında kadın hasta olup, tümörün makroskopik özellikleri, literatür ile uyumluluk göstermektedir.



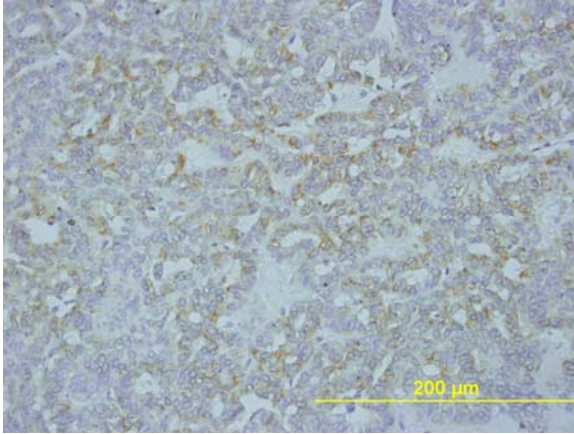
Şekil 1. Duktus benzeri yapıardan oluşmuş tümör dokusu (HE, x200).



Şekil 2. Çevre bağ dokusu içinde yer alan multipl tümör odakları (HE, x40).



Şekil 3. Kapsülde lokalize tümör dokusu izlenmektedir (HE, x40).



Şekil 4. Tümör hücrelerinde sitokeratin 19 pozitifliği (Cytokeratin 19, x400)

Kanaliküler adenomların histolojik özelliklerini belirlemek ve diğer tümörlerden ayırdetmek zor değildir. Mikroskopik olarak tümör parankimi kolumnar hücrelerden oluşur ve tümör hücreleri çift sıra halinde dizilerek anostomozlaşan kanal benzeri yapılar oluşturur. Bu hücrelerde pleomorfizm belirgin değildir ve mitoz dikkati çekmez. Vasküler yapılardan zengin, gevşek fibröz bir stroması vardır (7-10).

İmmünohistokimyasal incelemelerde tümör hücrelerinin AE1/AE2, sitokeratin 19 ve S100 ile pozitif boyandığı izlenir. Sitokeratin7, sitokeratin 8 ile parsiyel immünreaktivite gözlenirken, düz kas aktini, sitokeratin13, sitokeratin14 ve vimentin ile immünreaktivite izlenmez (3). Bizim olgumuza uyguladığımız immünohistokimyasal panelde sitokeratin19 ve S-100 ile pozitif boyanma saptandı. Sitokeratin7 ise fokal pozitif boyandı. Düz kas aktini ve vimentin ile boyanma saptanmadı.

Kanaliküler adenomlar diğer intraoral tükrük bezi tümörlerinden farklı şekilde klinik ve mikroskopik multifokalite gösterirler. Bu durumda tümör adacıkları bazen ana lezyondaki kapsül içerisinde ya da çevre dokularda izlenebilir. Bu mikroskopik odakların cerrahi rezeksiyondan sonra muhtemelen tümör rekürrensine yol açtığı düşünülmektedir (2,11). Bizim olgumuzda da kapsül dışında küçük odaklar halinde tümör dokusu izlenmekteydi.

Kanaliküler adenoma ağız içinin birçok benign ve malign lezyonları ile karışır. Lezyon üzerindeki mukozaya bazen açık mavi renkte izlenir ve klinikte mukosele benzeyebilir. Morfolojik olarak bu

tümörler tübülo-trabeküler görünümdeki bazal hücreli adenom, polimorfov düşük dereceli adenokarsinom, adenoid kistik karsinom ve papiller kistadenokarsinomdan ayırt edilmelidir. Tübülo-trabeküler bazal hücreli adenomda bazal hücreler ve luminal hücreler olmak üzere iki farklı hücre tipi izlenir. Bu tümördeki stroma kanaliküler adenoma göre daha kollajenizedir. Kanaliküler adenomada polimorfov düşük dereceli adenokarsinom ve adenoid kistik karsinomlarda görülen çevre dokulara, tükrük bezine ve nöral yapılara invazyon izlenmez. Ayrıca polimorfov düşük dereceli adenokarsinomlarda tümör hücrelerinin histolojik olarak oluşturduğu yapılar çok çeşitlidir. Adenoid kistik karsinomlar da ise tümör adacıklarında iki tip hücre izlenir ve psödokistik mesafeler dikkati çeker. Aradaki stroma ise kanaliküler adenomdaki gibi belirgin değildir. Tek bir nodülden oluşan, küçük kistik yapılar içeren ve papiller projeksiyonlar yapan kanaliküler adenomlar ise papiller kistadenokarsinom ile karışabilir. Papiller kistadenokarsinomda papiller yapılar birbirleri ile birleşir ya da dallanmalar oluşturur. Bu papiller yapıların yüzeyi daha üniform hücreler ile döşelidir (2,3).

Kanaliküler adenomların tedavisi cerrahi eksizyondur (8). Her ne kadar rekürrens riski düşük olsa da, multifokal özellikteki kanaliküler adenom olgularında operasyon alanında tümör dokusu kalabileceğinden uzun süre takip edilmesi gerektiğine inanmaktayız. Histolojik olarak multifokal özellikteki olgumuz, 1 yıldır klinikte takip edilmekte olup rekürrense rastlanmamıştır.

Kaynaklar

1. Azevedo LR, Dos Santos JN, Delima AAS, Machadeo MAN, Gregio AMT. Canalicular adenoma presenting as an asymptomatic swelling of the upper lip: A case report. J Comtemp Dent Pract 2008;9:91-7.
2. Rousseau A, Mock D, Dover DG and Jordan RCK. Multipl canalicular Adenomas a case report and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1999;87:346-50.
3. Matsuzaka K, Murakami S, Shimonon M, Inoue T. Canalicular adenoma arising in the upper lip. Rewiev of the pathological findings. Bull Tokyo Dent Coll 2004;45:229-33.
4. Yih W, Kratochvil F, Stewart J. Intraoral Minor Salivary Gland Neoplasms: Review of 213 cases. J of Oral Maxillofac Surg 2005;63:805-10.
5. Waldron CA, el-Mofty SK, Gnepp DR. Tumors of the intraoral salivary glands: a demographic and histologic study of 426 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1988;66:323-33.

6. Buchner A, Merrell PW, Carpenter WM. Relative frequency of intra-oral minor salivary gland tumors: a study of 380 cases from northern California and comparison to reports from other parts of the world. *J Oral Pathol Med* 2007;36:207-14.
7. Harmse JL, Saleh HA, Odutoye T, Alsanjari NA, Mountain RE. Recurrent canaliculal adenoma of the minor salivary glands in the upper lip. *J Laryngol otology*. 1997;3:985-7.
8. Smullin SE, Fielding AF, Susarla SM, Pringle G, Eichstaedt R. Canaliculal adenoma of the palate: Case report and literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2004;98:32-6.
9. Slootweg PJ, Cardesa A. Major and minor salivary Glands. In: Palma SD, Simpson RHW, Skalova A, Leivo I, eds. *Pathology of the Head and Neck*. 1st ed. Germany: Springer; 2006.p. 143-4.
10. Regezi JA, Sciubba JJ, Jordan RCK. Salivary Gland Diseases. In: Sciubba JJ, ed. *Oral Pathology*. 4th ed. USA: Elsevier; 2002. p.199-200.
11. Yoon AJ, Beller DE, Woo VL, Pulse CL, Zegarelli DJ. Bilateral canaliculal adenomas of the upper lip. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2006;102:341-3.