

Unilokuläre xanthogranulomatöse Entzündung der linken Wange mit Ossifikation unklarer Ätiologie

65. Kongress der Deutschen Gesellschaft für Mund-, Kiefer- und Gesichtschirurgie, 10.-13.06.2015, Stuttgart

¹Lommen J, ¹Schrader F, ²Zaum E, ¹Kübler NR, ¹Handschel J, ¹Holtmann H

¹Klinik für Mund-, Kiefer- und Plastische Gesichtschirurgie, Westdeutsche Kieferklinik, Universitätsklinikum Düsseldorf

²Institut für Pathologie, Universitätsklinikum Düsseldorf

UKD Universitätsklinikum
Düsseldorf

Einleitung

Veränderungen der Wangenschleimhaut – benigne sowie maligne – werden in der Literatur auf der Grundlage infektiös-entzündlicher (Aktinomykose, Tuberkulose) (1,2), neoplastischer (Metastasen, Lymphome) (3,4) sowie traumatischer (Morsicatio buccarum) (5) Krankheitsbilder beschrieben. Ossifizierende Veränderungen der Wangenhaut und der Wangenweichgewebe wurden bisher im Pilomatrixom, melanozytären Naevus, Basalzellkarzinom, in epidermalen Zysten und nach Entzündung sowie Traumata beschrieben (6). Über ossifizierende Veränderungen der Mundschleimhaut wurde hingegen nur im malignen Melanom berichtet (7). Ossifikationen durchsetzt mit xanthogranulomatösen Anteilen – wie in diesem Fall gezeigt – wurden bisher bei Mundschleimhautveränderungen nicht beobachtet. Xanthogranulomatöse Entzündungsreaktionen sind häufig in Gallenblase, Niere und Hoden zu finden und stellen wenn überhaupt im Kopfbereich dann in Kopfspeicheldrüsen – mit nur 7 in der Literatur beschriebenen Fällen – bisher eine Rarität dar (8). In der Gl. parotidea etwa zeigen sie sich selten als sekundäre Gewebeantwort nach resezierten Zystadenolympfomen (8). Eine begleitende Ossifikation ist derweilen in der Literatur nicht beschrieben.

Patient und Methode

Vorgelegt wird ein bei Erstvorstellung 61-jähriger Patient mit einer seit Jahren vorbekannten Raumforderung im Bereich des linken Planum buccale. Bei intraoraler Inspektion präsentiert sich eine klinisch ca. 5 x 3 x 3 cm große indolente, indurierte und nicht verschiebbare Raumforderung der linken Wange. Diese liegt anterior der linken Glandula parotidea und des linken Musculus masseter bei intakter extra- und intraoraler Haut- bzw. Schleimhautintegrität. Anamnestisch besteht bei dem Patienten eine koronare Herzkrankheit (KHK), Hypertonie, Hyperlipidämie, ein nicht-insulinpflichtiger Typ-2-Diabetes sowie eine Niereninsuffizienz (Stadium 3).



Abb. 1: OPTG unseres Patienten bei Erstvorstellung. Deutlich zu sehen ist die heterotope Opazität im linken Planum buccale im Sinne einer Ossifikation.



Abb. 2: Koronare MRT Aufnahme in T2-Wichtung.



Abb. 3: Koronare MRT Aufnahme in T1-Wichtung

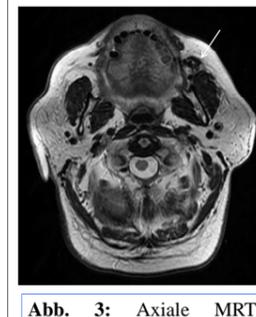


Abb. 3: Axiale MRT Aufnahme in T2-Wichtung.



Abb. 4: Sagittale MRT Aufnahme in T2-Wichtung.

Ergebnisse

Nach initialer klinischer Untersuchung und Bildgebung erfolgte die chirurgische Exzision über einen intraoralen Zugang in Intubationsnarkose. Aufgrund der direkten Nachbarschaft zum Ductus parotideus erfolgte eine präoperative temporäre Schienung des Gangs. Die Exzisionsbiopsie lieferte das histologische Bild einer hochgradigen Fibrose, teils mit schwerer xanthogranulomatöser Entzündung und heterotoper Ossifikation ohne Anhalt für Malignität. Speicheldrüsengewebe (im Sinne einer akzessorischen Drüse) ließ sich nicht sichern.



Abb. 4: Intraoperativer Zugang mit horizontaler Schnittführung entlang der Linea alba buccalis (Interkalarlinie). Die Schienung des Stenon-Gangs mittels Drainage ist gut zu erkennen. Die Naht erfolgte in Einzelknopftechnik.

Abb. 5: 3,7 x 2 x 1,3 cm großes knotiges Geweberesektat. Bei weiterer Inspektion wird eine graugelbe, kalkharte Verfärbung sichtbar.

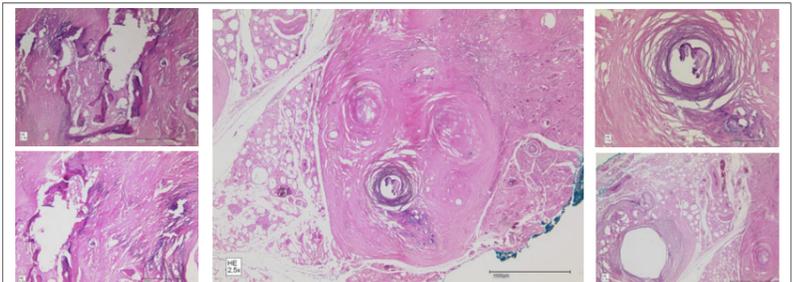


Abb. 6: Hämatoxylin-Eosin (HE) gefärbte Gewebeproben. Basophile (saure) Strukturen sind blau, eosinophile (basische) Strukturen rot gefärbt. Zu erkennen ist fibrotisches Bindegewebe durchsetzt mit hyperostotisch, kompaktem Knochengewebe. Ebenfalls im Ausschnitt dargestellt sind xanthogranulomatöse Entzündungsinfiltrate.

Diskussion

Wie durch Agaimy et. al. beschrieben, lassen sich xanthogranulomatöse Entzündungen wie beispielsweise der Kopfspeicheldrüsen in seltene idiopathische und häufigere sekundäre Formen unterteilen (8). Dabei präsentiert sich die sekundäre Form als Folge einer klinisch identifizierbaren entzündlich-reaktiven oder neoplastischen Läsion (z.B. Speichelextravasation oder Zystadenolympfom) (8). Derartige vorbestehende Läsionen konnten anamnestisch in unserem Fall nicht eruiert werden. Die idiopathische xanthogranulomatöse Entzündungsform – von denen bisher nur zwei Fälle ebenfalls für Kopfspeicheldrüsen beschrieben wurden – entsteht ohne erkennbare tumoröse oder zystische Läsion (8). Eine Ossifikation innerhalb einer xanthogranulomatösen Entzündung ist ein bisher nicht beschriebenes Krankheitsbild im Kopf- und Halsbereich. Ebenso finden sich bei unserem Patienten keine klinischen oder histologischen Anzeichen, die auf eine zusätzliche Beteiligung seiner Kopfspeicheldrüsen an dieser Raumforderung schließen lassen. Die bei unserem Patienten dargestellte Ossifikation einer xanthogranulomatösen Entzündung ohne Speicheldrüsenbeteiligung scheint – in Anlehnung an die Patientenanamnese – deren langjährige Persistenz vorauszusetzen. Weitere Analysen ähnlicher Fallbeschreibungen sind nötig, um die Pathogenese dieser histologischen Rarität zu entschlüsseln. Andererseits sollten, wie dieser Fall zeigt, in Zukunft auch seltene, ätiologisch unklare Entitäten in die differentialdiagnostischen Überlegungen von Raumforderungen in der Wange mit einbezogen werden.

Literatur:

- 1 Vidakovic B, Macan D, Peric B, Spomenka M (2014): **Actinomycosis of the cheek**. Srp Arh Celok Lek. 2014 Jul-Aug;142(7-8):472-5.
- 2 Chaudhary N, K Gupta D, Choudhary SR, Dawson L (2014): **Primary tuberculosis of the cheek: a common disease with rare presentation**. Malays J Med Sci. 2014 Jan;21(1):66-8.
- 3 Marin H, Bouras AF, Patenotre P, Boleslawski E, Zerbib P, Pruvot FR, Truant S (2013): **Cheek metastasis from gallbladder adenocarcinoma**. J Visc Surg. 2013 Jun;150(3):225-6.
- 4 Malaguarnera M, Giordano M, Russo C, Puzzo L, Trainiti M, Consoli AS, Catania VE (2012): **Lymphoma of cheek: a case report** Eur Rev Med Pharmacol Sci. 2012 Oct;16 Suppl 4:4-7.
- 5 Cam K, Santoro A, Lee JB (2012): **Oral frictional hyperkeratosis (morsicatio buccarum): an entity to be considered in the differential diagnosis of white mucosal lesions** Skinmed. 2012 Mar-Apr;10(2):114-5.
- 6 Ishida M, Ikwai M, Kagotani A, Iwamoto N, Okabe H (2014): **Epidermal cyst of the skin with ossification: report of two cases**. Int J Clin Exp Pathol. 2014 Mar 15;7(4):1823-5.
- 7 Banerjee SS, Coyne JD, Menasce LP, Lobo CJ, Hirsch PJ (1998): **Diagnostic lessons of mucosal melanoma with osteocartilaginous differentiation**. Histopathology. 1998 Sep; 33(3):255-60.
- 8 Agaimy A, Ihrlar S (2014): **Patterns of xanthogranulomatous reaction in salivary glands. Histomorphological spectrum and differential diagnosis**. Pathologe. 2014 Mar;35(2): 160-5.