

Żabka nurkująca u dzieci

Plunging ranula in children

Wkład autorów:

A – projekt badań
B – wykonanie badań
C – analiza statystyczna
D – interpretacja danych
E – przygotowanie manuskryptu
F – przegląd piśmiennictwa

Bożena Skotnicka^{1AE}, Krzysztof Trzpis^{1BF}, Elżbieta Gościk^{2BD}, Joanna Reszeć^{3BD}, Elżbieta Hassmann-Poznańska^{1CF}

¹Klinika Otolaryngologii i Pediatrii, Uniwersytet Medyczny w Białymstoku, Białystok 15-274, Polska.

²Klinika Radiologii Dziecięcej, Uniwersytet Medyczny w Białymstoku, Białystok 15-274, Polska.

³Klinika Patomorfologii Medycznej, Uniwersytet Medyczny w Białymstoku, Białystok 15-269, Polska.

Article history: Received: 10.07.2015 Accepted: 20.08.2015 Published: 30.09.2015

STRESZCZENIE:

Cel: Żabka nurkująca jest wynaczynieniem śluzowym ze ślinianki podjęzykowej rozciągającym się do przestrzeni podżuchwowej. Większość pacjentów stanowią osoby w drugiej i trzeciej dekadzie życia, rzadko spotyka się ją u dzieci.

Metodyka: Opisano trzy przypadki żabki drążącej u dzieci, z których jeden stanowiła zmiana u noworodka. Przedstawiono również przegląd piśmiennictwa ze szczególnym uwzględnieniem diagnostyki różnicowej i metod leczenia.

Wyniki: Żabki manifestowały się, jako wolno rosnące, miękkie masy zlokalizowane w przestrzeni podżuchwowej. U dwóch pacjentów były również widoczne wewnątrz jamy ustnej. Rozpoznanie ustalono w oparciu o objawy kliniczne i wynik badania tomografii komputerowej. We wszystkich przypadkach badanie histopatologiczne potwierdziło rozpoznanie pseudo torbieli.

Wniosek: Żabka nurkująca może być nieprawidłowo rozpoznana, szczególnie u małych dzieci i w przypadkach, w których objawy obejmują tylko obrzęk okolicy podżuchwowej.

SŁOWA KLUCZOWE: żabka nurkująca, dzieci, diagnostyka różnicowa, metody leczenia

ABSTRACT:

Objective: Plunging ranula represents mucous extravasation from the sublingual salivary gland extending to the submandibular space. Although the majority of patients present in the second or third decade of life, it rarely occurs in children. **Methods:** Three cases of plunging ranula in children, including one in a neonate, are described. The review of the relevant literature is also presented with a special notice to the differential diagnosis and treatment options.

Results: Ranulas presented as a slow-growing, soft mass located in the submandibular area. Two patients had also oral presentation. The diagnosis was established basing on clinical signs and computed tomography findings. All cases were treated surgically using various methods. In all cases the histopathological examination confirmed the diagnosis of pseudocyst.

Conclusion: Plunging ranula may be misdiagnosed especially in young children and in cases presenting only the symptoms of submandibular swelling.

KEYWORDS: plunging ranula, children, differential diagnosis, treatment options

WPROWADZENIE

Żabka jest pseudo torbielą o cienkiej ścianie, spowodowaną wynaczynieniem zawartości ślinianki podjęzykowej, zlokalizowaną w obrębie dna jamy ustnej. Szczególnym rodzajem żabki jest

zmiana określona, jako „plunging ranula” (pol. żabka nurkująca). W tym przypadku pseudo torbiel ulega wklonowaniu przez mięsień żuchwowo-gnykowy lub za nim do przestrzeni podżuchwowej. Objawy niekiedy ograniczają się do obrzęku okolicy podżuchwowej, a w takich przypadkach diagnostyka może być utrudniona.

Spośród 70 pacjentów z chorobami dużych gruczołów ślinowych leczonych w Klinice Otolaryngologii Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego w Białymstoku w latach 1996–2012, 12 miało torbiel gruczołu podjęzykowego (żabkę), a 3 żabkę nurkującą. Przedstawiamy różne objawy tego rodzaju zmian i analizujemy proces diagnostyki i leczenia.

OPISY PRZYPADKÓW

Przypadek 1.

Dziesięcioletni chłopiec został przyjęty z masą w okolicy podżuchwowej po stronie prawej oraz z uwypukleniem dna jamy ustnej po tej samej stronie. Zmiana pojawiła się ok. 4 miesiące wcześniej, bez szczególnej przyczyny, objawów dyskomfortu lub zapalenia i uległa stopniowemu powiększeniu. Badanie kliniczne wykazało obecność cienkościennej, przezroczystej torbieli o rozmiarach 1,5 x 3 cm w prawej okolicy podjęzykowej oraz miękką, bezbolesną masę wypełniającą przestrzeń podżuchwową po stronie prawej (ryc. 1 a i 1 b).

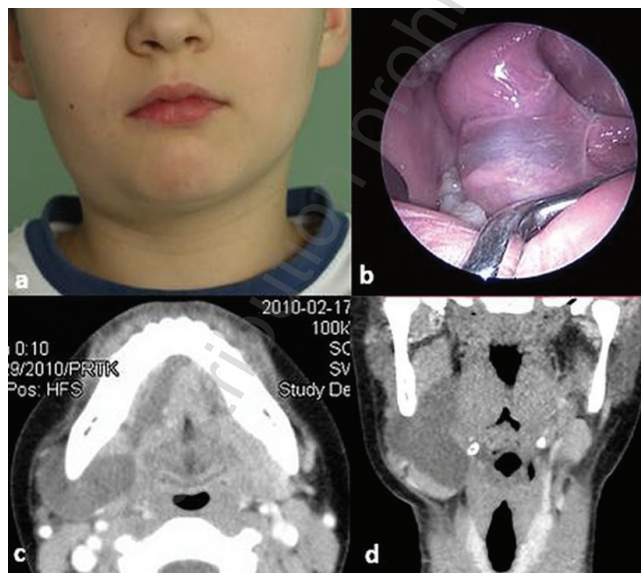
W badaniu tomografii komputerowej (TK) stwierdzono hipodensyjny obszar w okolicy podżuchwowej po stronie prawej o rozmiarze 49 x 34 x 32 mm, otaczający dolną część trzonu i kąta żuchwy oraz przesuwającą przesuwającą prawą śliniankę podżuchwową. Widoczny guz był połączony cienkim przewodem z obszarem o podobnej gęstości o rozmiarze 3,5 x 3,1 x 1,2 cm w obrębie dna jamy ustnej (ryc. 1 c i 1 d).

Torbiel usunięto z dojścia szyjno-podżuchwowego wraz z prawą ślinianką podżuchwową. Torbiel przechodziła do jamy ustnej w pobliżu przewodu Whartona. Część torbieli zlokalizowana podjęzykowo oraz prawa ślinianka podjęzykowa zostały usunięte z dostępu wewnątrz ustnego.

Przypadek 2.

U siedmiomiesięcznego niemowlęcia zaobserwowano torbiel w obrębie dna jamy ustnej po stronie lewej. Torbiel była obecna od urodzenia i ulegała stopniowemu powiększeniu, powodując problemy z karmieniem. Ponadto zaobserwowano powolnie powiększające się od 4. m.ż. miękkie uwypuklenie w okolicy podżuchwowej po stronie lewej. W badaniu klinicznym stwierdzono obecność bezbolesnego, miękkiego guza o rozmiarach 2,5-3,0 cm w przestrzeni podżuchwowej po stronie lewej oraz przezroczystą torbiel o rozmiarach 4,0 x 2,0 cm unoszącą język w obrębie dna jamy ustnej po tej samej stronie.

W badaniu TK stwierdzono hipodensyjne obszary w bezpośrednim sąsiedztwie ślinianki podżuchwowej, dochodzące do



Ryc.1. Przypadek 1 (a) obrzęk okolicy podżuchwowej po prawej stronie pokryty niezmienioną skórą (b) cienkościenne, niebieska, przezroczysta torbiel na dnie jamy ustnej po stronie prawej (c) wynik badania TK, widok osiowy, badanie z kontrastem, wykazuje homogenną niewzmocniającą się masę o niskiej intensywności i gładkich brzegach, otaczającą kąt żuchwy i penetrującą w kierunku przednim do przestrzeni podjęzykowej, przez co tworzy "objaw ogona" (d) widok w przekroju czołowym wykazuje homogenną masę wypełniającą przestrzeń podjęzykową i podżuchwową i przemieszczającą śliniankę podżuchwową w kierunku bocznym.

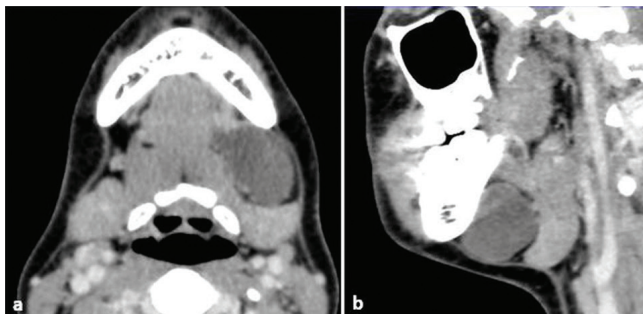
wewnętrznej powierzchni podstawy żuchwy, przekraczającą linię pośrodkową. Gęstość radiologiczna obszaru wynosiła 50–75 jednostek Hounsfielda, ze wzmocnieniem ściany. Torbiel modelowała otaczające naczynia krwionośne (ryc. 2).

Przeprowadzono resekcję ściany torbieli w dnie jamy ustnej. Ponieważ ta część torbieli miała szerokie połączenie z częścią położoną w przestrzeni podżuchwowej uległa opróżnieniu. Usunięcie ślinianki podjęzykowej odroczone ze względu na brak możliwości sondowania przewodu ślinianki podżuchwowej. Brzegi torbieli zostały wszyte w śluzówkę.

Przypadek 3.

Piętnastoletnia dziewczynka została skierowana z powodu uwypuklenia okolicy podżuchwowej po stronie lewej, które zauważono około 3 miesięcy wcześniej. Zmiana stopniowo się powiększała. W badaniu klinicznym stwierdzono miękkie, bezbolesne guz o rozmiarze 3,0 cm w okolicy podżuchwowej po stronie lewej. Nie zaobserwowano zmian patologicznych w obrębie jamy ustnej.

Badanie TK ujawniło dobrze odgraniczony hipodensyjny obszar o rozmiarach 2,6 x 2,5 x 2,4 cm zawierający niehomogeny



Ryc. 2. Przypadek 2. Obraz TK (a) obraz badania z kontrastem w przekroju osiowym wykazuje homogenną masę o niskiej intensywności, gładkich brzegach i wzmacniającej się obrzeżem, wypełniającą przestrzeń podjęzykową i podżuchwową po stronie prawej (b) przekrój czołowy wykazuje homogenną masę wypełniającą przestrzeń podjęzykową i podżuchwową oraz przemieszczającą śliniankę podżuchwową w kierunku bocznym.

płyn, zlokalizowany w przestrzeni podżuchwowej po stronie lewej. Torbiel zmieniała kształt prawej ślinianki podżuchwowej, która leży w pobliżu żuchwy i lewego mięśnia żuchwowo-gnykowego (ryc. 3).

W trakcie zabiegu torbiel, zawierająca gęstą wydzielinę śluzową, została usunięta z dojścia szyjno-podżuchwowego w lewej przestrzeni podżuchwowej. Torbiel była połączona ze ślinianką podjęzykową za tylnym brzegiem lewego mięśnia żuchwowo-gnykowego. Śliniankę podjęzykową usunięto z dojścia wewnątrzustnego.

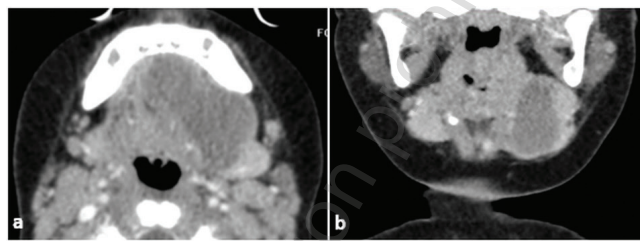
We wszystkich opisywanych przypadkach badanie histopatologiczne potwierdziło rozpoznanie pseudotorbieli z naciekiem limfocytarnym i granulocytarnym w jej ścianie (ryc. 4).

Przebieg po zabiegach był niepowikłany. Nie zaobserwowano wznowy.

OMÓWIENIE

Zmiany typu żabki drążące nurkującej j występują rzadko u osób pochodzenia europejskiego, a znacznie częściej w populacjach maoryskich, polinezyjskich i azjatyckich [1, 2, 3]. Z tego względu większość obszerniejszych badań na ten temat pochodzi z Nowej Zelandii, Chin i Korei [2, 3, 4, 5, 6].

Zmiany takie rozwijają się zwykle w drugiej i trzeciej dekadzie życia i uważa się, że występują rzadko u dzieci [1]. Jednak z dużego zestawienia takich przypadków wynika, że 16% z nich rozwinęło się u dzieci poniżej 10. r.ż. [4]. W większej opisaną grupie dzieci z tym zaburzeniem średni wiek pacjentów wynosił 12 lat, a najmłodszy chłopiec miał 3 lata [5]. Dwa z czterech opisanych przez nas przypadków stanowią dzieci



Ryc. 3. Przypadek 3, obraz TK (a) badanie z kontrastem, przekrój osiowy wykazuje owalną homogenną masę niewzmacniającą się, o niskiej intensywności i gładkich brzegach, wypełniającą przestrzeń podżuchwową z krótkim rozszerzeniem do przestrzeni podjęzykowej, efekt masy z przesunięciem ślinianki podżuchwowej do tyłu (b) rekonstrukcja w płaszczyźnie strzałkowej strony prawej od linii pośrodkowej, wykazuje homogenną, owalną masę o gładkich brzegach pod dnem jamy ustnej w przestrzeni podżuchwowej, przemieszczającą śliniankę podżuchwową ku tyłowi.

w najbardziej typowej grupie wiekowej, natomiast trzeci to niemowlę z żabką zaobserwowaną od razu po urodzeniu, najpierw jedynie w obrębie jamy ustnej. Jest to drugi przypadek zmiany typu „plunging ranula” u niemowlęcia opisany dotychczas [7].

Zmiana ta rozwija się, jako konsekwencja penetracji pseudo torbieli do przestrzeni podżuchwowej pomiędzy tylnym brzegiem mięśnia żuchwowo-gnykowego i gnykowo-językowego, przez szczelinę, która pełni rolę wrót dla przewodu Whartona. Taką sytuację zaobserwowaliśmy we wszystkich opisanych przez nas przypadkach. Żabka nurkująca może również rozwinąć się wskutek wklinowania się części ślinianki podjęzykowej w przestrzenie pomiędzy włóknami mięśnia żuchwowo-gnykowego. Harrison i wsp. [8] potwierdzili obecność takich przestrzeni w mięśniu żuchwowo-gnykowym w 40% badanych preparatów, a w 60% z nich zaobserwowano tkankę ślinianki podjęzykowej. Wklinowane części ślinianki podjęzykowej mogą doprowadzić do rozwoju żabki nurkującej, bez żadnych objawów patologicznych w okolicy podjęzykowej. Zmiany te były ograniczone do przestrzeni podżuchwowej w 56–74% pacjentów z Nowej Zelandii i Chin [3, 4, 5, 9]. Wydaje się, że taka sytuacja jest znacznie rzadsza w populacji pacjentów rasy kaukaskiej. Żabka ograniczona do przestrzeni podżuchwowej została stwierdzona w jednym przypadku.

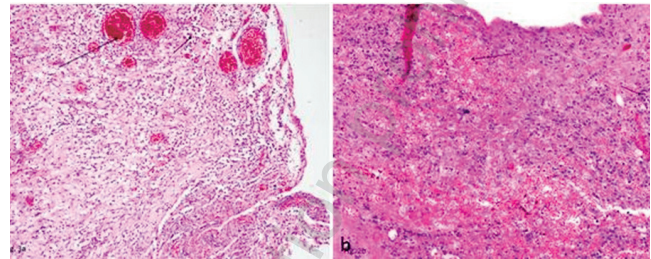
Tego typu zmiany zwykle objawiają się, jako bezbolesne, sprężyste masy w przestrzeni podżuchwowej, tak, więc należy je różnicować z innymi zmianami torbielowatymi zlokalizowanymi w tej okolicy: naczylnikiem chłonnym, malformacją naczyńniową, torbielą skórzastą lub torbielą przewodu tarczowo-językowego, jak również ropniem. Rozpoznanie opiera się głównie na badaniu klinicznym, diagnostyce obrazowej i biopsji cienkoigłowej aspiracyjnej. Ta ostatnia metoda jest często stosowaną procedurą diagnostyczną w krajach, w których powszechnie występuje żabka nurkująca [3, 4, 5, 10]. Uzyskanie

w biopsji jasnożółtego płynu, pozytywnego w barwieniu na mucynę potwierdza rozpoznanie [10].

Tomografia komputerowa, najczęściej stosowana technika obrazowania, wykazuje w przypadku żabki obecność homogennej masy, z gładkimi ścianami, bez przegród wewnętrznych, zlokalizowanej w przestrzeni podżuchwowej i przemieszczającą śliniankę podżuchwową. Tzw. „objaw ogona”, przedłużenie torbieli do przestrzeni podjęzykowej, uważa się za patognomoniczny dla żabki nurkującej. Nieobecność przegród w obrębie torbieli pozwala na odróżnienie jej od naczyniaka chłonnego. Przewagą obrazowania metodą rezonansu magnetycznego nad TK jest doskonała możliwość różnicowania otaczających mięśni i innych tkanek miękkich **oraz dokładnego określenia** zasięgu zmiany [11].

Ultrasonografia, ze względu na nieinwazyjność badania, jest często stosowana, jako pierwsza metoda obrazowania. Niektórzy badacze uważają ją za wystarczającą do potwierdzenia rozpoznania oraz wystarczająco dobrą do określenia obecności wklonowania torbieli z przestrzeni podjęzykowej do okolicy podżuchwowej [12].

Istnieją różne metody leczenia tego typu zmian: marsupializacja, usunięcie ślinianki podjęzykowej, usunięcie pseudo torbieli wraz z obiema śliniankami: podjęzykową i podżuchwową oraz skleroterapia. W naszych przypadkach również zastosowaliśmy różne zabiegi chirurgiczne, w zależności od rozmiaru torbieli oraz wieku pacjenta. Internetowa ankieta przeprowadzona wśród członków Amerykańskiego Towarzystwa Chirurgii Głowy i Szyi wykazała, że połowa z nich wybrałaby dostęp łączny (szyjno-podżuchwowy oraz wewnątrz ustny), a 27% dojsięce wewnątrz ustne [13]. Preferowane metody leczenia takich zmian obejmowały: wycięcie ślinianki podjęzykowej i pseudo torbieli w 39%, wycięcie żabki oraz ślinianki podżuchwowej i podjęzykowej – w 23%, wycięcie jedynie zmiany – w 14% oraz w 13% usunięcie ślinianki podjęzykowej i opróżnienie żabki. Współcześnie wewnątrz ustne wycięcie ślinianki podjęzykowej i opróżnienie zawartości zmiany wydaje się być najbardziej



Ryc. 4. Badanie histopatologiczne. (a) pacjent nr 3: luźna ściana włóknista pseudotorbieli z rozszerzonymi naczyniami krwionośnymi (powiększenie 100x). (b) pacjent nr 1: pseudotorbiel, w obrębie ściany włóknistej znaczny naciek zapalny granulocytarny i limfocytarny (strzałka) oraz małych naczyń krwionośnych (strzałka) (powiększenie 200x).

skuteczną metodą zapobiegania wznowie [2, 3, 4, 5, 9, 10, 13, 14]. Takie podejście jest również właściwe dla zwykłych torbieli wewnątrz ustnych [15]. Jednakże w obserwacji po leczeniu chirurgicznym przez okres dłuższy niż 2 lata, odsetek wznów wzrastał do 13%, nawet, gdy usunięto śliniankę [2].

Próby leczenia żabki nurkującej z wykorzystaniem skleroterapii z zastosowaniem OK-432 wydają się dobrym rozwiązaniem. Całkowite lub prawie całkowite zmniejszenie zmian zaobserwowano u ok. 70% pacjentów, a w pozostałej części częściowe ustąpienie zmian. Zaobserwowany odsetek wznów wynosił ok. 20%. W większości przypadków konieczne było wykonanie jednej lub dwóch iniekcji [6]. Biorąc pod uwagę mniejszą liczbę powikłań po zastosowaniu tej metody, może ona stanowić alternatywę leczenia chirurgicznego.

WNIOSEK

Żabka nurkująca może być nieprawidłowo rozpoznana, szczególnie w przypadkach, które manifestują się jedynie, jako obrzęk okolicy podżuchwowej. Dokładne zebranie wywiadu, badanie fizykalne i badania obrazowe oraz wzięcie pod uwagę możliwości tej rzadkiej choroby pozwalają na jej prawidłowe rozpoznanie.

PIŚMIENNICTWO

1. Morton R.P., Ahmad Z., Jain P.: Plunging ranula: congenital or acquired? *Otolaryngol Head Neck Surg.*, 2010; 142: 104-107.
2. Davison M.J., Morton R.P., McIvor N.P.: Plunging ranula: clinical observations. *Head Neck*, 1998; 20: 63-68.
3. Mahadevan M., Vasan N.: Management of pediatric plunging ranula. *Int. J. Pediatr. Otorhinolaryngol.*, 2006; 70: 1049-1054.
4. Zhao Y.F., Jia Y., Chen X.M., Zhang W.F.: Clinical review of 580 ranulas. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. Oral Radiol. Endod.*, 2004; 98: 281-287.
5. Zhi K., Wen Y., Zhou H.: Management of the pediatric plunging ranula: results of 15 years' clinical experience. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. Oral Radiol. Endod.*, 2009; 107: 499-502.
6. Roh J.L., Kim H.S.: Primary treatment of pediatric plunging ranula with nonsurgical sclerotherapy using OK-432 (Picibanil). *Int. J. Pediatr. Otorhinolaryngol.*, 2008; 72: 1405-1410.

7. Matt B.H., Crockett D.M.: Plunging ranula in an infant. *Otolaryngol. Head Neck Surg.*, 1988; 99: 330-333.
8. Harrison J.D., Kim A., Al-Ali S., Morton R.P.: Postmortem investigation of mylohyoid hiatus and hernia: a etiological factors of plunging ranula. *Clin. Anat.*, 2013; 26: 693-699.
9. Huang S.F., Liao C.T., Chin S.C., Chen I.H.: Transoral approach for plunging ranula – 10-year experience. *Laryngoscope*, 2010; 120: 53-57.
10. Samant S., Morton R.P., Ahmad Z.: Surgery for plunging ranula: the lesson not yet learned? *Eur. Arch. Otorhinolaryngol.*, 2011; 268: 1513-1518.
11. Kurabayashi T., Ida M., Yasumoto M., Ohbayashi N., Yoshino N., Tetsumura A., Sasaki T.: MRI of ranulas. *Neuroradiology*, 2000; 42: 917-922.
12. Jain P., Jain R., Morton R.P., Ahmad Z.: Plunging ranulas: high-resolution ultrasound for diagnosis and surgical management. *Eur. Radiol.*, 2010; 20: 1442-1449.
13. Patel M.R., Deal A.M., Shockley W.W.: Oral and plunging ranulas: What is the most effective treatment? *Laryngoscope*, 2009; 119: 1501-1509.
14. Harrison J.D.: Modern management and pathophysiology of ranula: literature review. *Head Neck*, 2010; 32: 1310-1320.
15. Morita Y., Sato K., Kawana M., Takahasi S., Ikarashi F.: Treatment of ranula – excision of the sublingual gland versus marsupialization. *Auris Nasus Larynx*, 2003; 30: 311-314.

Word count: 1670 Tables: – Figures: 4 References: 15

Access the article online: DOI: 10.5604/20845308.1168524 Full-text PDF: www.otorhinolaryngologypl.com/fulltxt.php?ICID=1168524

Corresponding author: Bożena Skotnicka Klinika Otolaryngologii Dziecięcej, Uniwersytet Medyczny w Białymstoku, ul. J. Waszyngtona 17, 15-274 Białystok, Polska Tel.: +48 85 7450832; fax: +48 85 7450832, adres e-mail: boskot@umb.edu.pl

Copyright © 2015 Polish Society of Otorhinolaryngologists Head and Neck Surgeons. Published by Index Copernicus Sp. z o.o. All rights reserved

Competing interests: The authors declare that they have no competing interests.

Cite this article as: Skotnicka B., Trzpis K., Gościk E., Reszeć J., Hassmann-Poznańska E.: Plunging ranula in children. *Pol Otorhino Rev* 2015; 4(3): 29-33