

Parotis Bezinde Alfa-Amilaz Kristaloid Granülomu

Alfa-Amylase Crystalloid Granuloma in the Parotis Salivary Gland: Case Report

Erdem ÇOMUT,^a
Enver VARDAR,^a
Didem ERSÖZ,^a
Yüksel OLGUN,^b
Tulu KEBAT^a

^aTıbbi Patoloji Kliniği,
^bKulak Burun Boğaz Hastalıkları Kliniği,
İzmir Bozyaka Eğitim ve
Araştırma Hastanesi,
İzmir

Geliş Tarihi/Received: 09.04.2014
Kabul Tarihi/Accepted: 13.10.2014

Yazışma Adresi/Correspondence:
Erdem ÇOMUT
İzmir Bozyaka Eğitim ve
Araştırma Hastanesi,
Tıbbi Patoloji Kliniği, İzmir,
TÜRKİYE/TURKEY
comuterdem@gmail.com

ÖZET Tirozinden zengin kristaloid, kollajenöz kristaloid, intraluminal kristaloid ve alfa-amilaz kristaloidleri de içeren çeşitli kristalin yapıları, tükürük bezinin non-neoplastik ve neoplastik lezyonlarında rapor edilmiştir. Alfa-amilaz kristaloidleri çoğunlukla tükürük bezinin non-neoplastik lezyonlarında görülür. Aynı zamanda non-tirozin kristaloidleri olarak da anılan bu kristaloidler; dikdörtgen, romboid ve çubuk şekilli olup, birbirine paralel kenarlara ve nokta şeklinde sonlanan uçlara sahiptir. Bu çalışmada, sağ parotis lojunda iki aydan bu yana infraauriküler kitlesi mevcut olan 80 yaşındaki kadın hasta sunulmuştur. Hastanın ultrasonografisinde sağ parotis glandının kuyruğunda yerleşimli 1,2 cm, en büyük boyutlu kistik kitle tespit edilmiştir. Kesitlerde çok sayıda romboid, dikdörtgen ve çubuk şekilli, non-birefrenjan özellikte kristaloid yapıları ve lenfositlerle infiltrate edilmiş asiner yapılar görülmüştür. Alfa-amilaz kristaloidleri içeren kistik sialadenit olarak rapor edilmiştir. Altı aylık takipte, kitleye ait nüks izlenmemiştir. Bu yapılar, bizim vakamızda olduğu gibi, yalnızca tükürük bezinin non-neoplastik lezyonlarında görüldüğünden, kesitlerde kristaloid yapılar saptandıktan sonra alfa-amilaz kristaloidleri ve diğer kristaloidlerin ayırımı önemlidir.

Anahtar Kelimeler: Tükürük bezleri; tükürük alfa-amilazları; alfa-kristallinler

ABSTRACT Several types of crystalline structures, including tyrosine-rich crystalloids, collagenous crystalloids, intraluminal crystalloids, and alpha amylase crystalloids, have been reported in neoplastic and non-neoplastic conditions of the salivary glands. Amylase crystalloids can be seen in mostly non-neoplastic salivary gland lesions. These crystalloids sometimes referred to as nontyrosine crystalloids are rectangular, rhomboid and rod-shaped with pointed ends with parallel sides. Here, an 80-year-old woman with an infraauricular mass existing for two months in her right parotid region is presented. On ultrasound a cystic mass, 1.2 cm in largest size was detected in the tail of right parotid gland. Sections showed numerous rhomboid, rectangular or rod-shaped, non-birefringent crystalloid structures and salivary acinar structures infiltrated with rich in lymphocytes. It was reported as cystic sialadenitis with alpha-amylase crystalloids. In the six-month follow-up, there was no recurrence of the mass. Since these structures are only seen in nonneoplastic lesions (sialadenitis and lymphoepithelial cyst) of the salivary glands as in our case, after observation of the crystalloid structures in sections, it's necessary to distinguish between alpha amylase crystalloids and the other crystalloids.

Key Words: Salivary glands; salivary alpha-amylases; alpha-crystallins

Türkiye Klinikleri J Case Rep 2015;23(4):389-92

Farklı natürlerde kristaloid yapıları (tirozinden zengin, kollajenöz, intraluminal ve alfa-amilaz kristaloidleri) tükürük bezlerinin neoplastik ve non-neoplastik lezyonlarıyla ilişkili olarak görülebilir.^{1,2} Alfa-amilaz kristaloidleri oldukça nadir görülen kristaloidler olup, yalnızca

doi: 10.5336/caserep.2014-40139

Copyright © 2015 by Türkiye Klinikleri

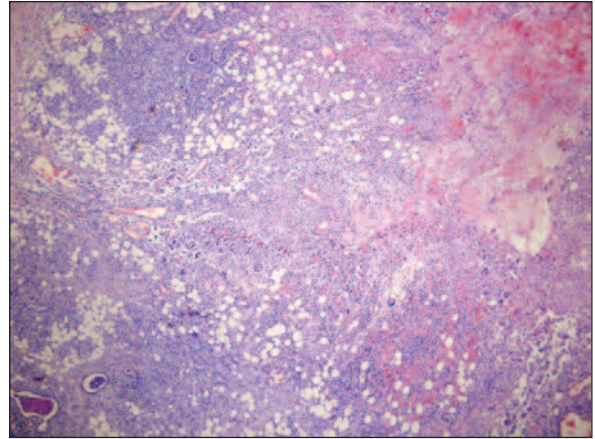
parotisin sialadenit ve lenfoepitelial kist gibi non-neoplastik lezyonlarında ortaya çıkar.^{3,4} Tükürük bezinin kistik lezyonlarında tanısız olarak uygulanan ince iğne aspirasyon biyopsisi ile neoplastik ve non-neoplastik hastalık ayırıcı tanısının yanı sıra bu kristaloidler de tanınabilmektedir.¹ Bu çalışmada, parotis bezinde subakut sialadenit ve alfa-amilaz kristaloid granülomu tanısı konan olgu, söz konusu lezyonun nadir görülmesi nedeni ile paylaşılmaktadır.

OLGU SUNUMU

Hastaneye sağ çene altında şişlik şikâyetiyle başvuran 80 yaşındaki kadın hastanın fizik incelemesinde sağ parotis bölgesinde ele gelen mobil kitle saptandı. Hastanın ultrasonografisinde, sağ parotis bezi yüzeysel lob inferiorunda lobüler kontürlü, kenar keskinliği izlenen 12x9 mm boyutlu belirgin vaskülarizasyon izlenmeyen hipoekoik solid lezyon mevcuttu. Bunun üzerine hastaya apseleşmiş kitle, parotis tümörü ön tanılarıyla sağ süperfisiyal parotidektomi uygulandı. Kliniğimize ulaşan 5x3x2 cm boyutlarındaki numunenin seri kesitlerle makroskopik incelemesinde, bir alanda cerrahi sınıra dayanmış görünümde lobüle tükürük bezi ile uyumlu alan ve bu alanın devamlılığında 1,2x1x1 cm boyutlarında ortası kanamalı bir alan dikkati çekti ve bu alanlar ayrı ayrı örneklendi (Resim 1). Materyale ait seri kesitlerin mikroskopik incelemesinde subakut natürde yangısal hücreleri içeren “sialadenit” ve buna ek olarak yer yer belirgin kanama ve kronik sialadeniti düşündüren lenfositlerden oldukça zengin karakterde yangısal mononükleer hücre infiltrasyonu saptandı (Resim 2). Büyük büyütmeye ile incelemede çok sayıda kristaloid yapısı yanı sıra bunların bazılarının yabancı cisim tipi multinükleer dev hücrelerce kuşatıldığı da dikkati çekti (Resim 3). Kimi dilate duktusların içinde bazıları yabancı cisim tipi dev hücrelerce fagosite edilmiş, eozinofilik, yuvarlak-köşeli ya da romboid karakterde, farklı şekillerde çok sayıda kristaloid görüldü. Bu kristaloidler histokimyasal olarak PAS (-) olup, Mason Trikrom ile kırmızı, Papanicolau boyası ile turuncu, Giemsa boyası ile ise derin mavi renkte boyanmıştır (Resim 4). Kristaller Kongo-red ile pozitif boyanma izlenmekle birlikte polarize



RESİM 1: Olağan tükürük bezine komşu yerleşimli kanamalı kistik karakterde kitle.

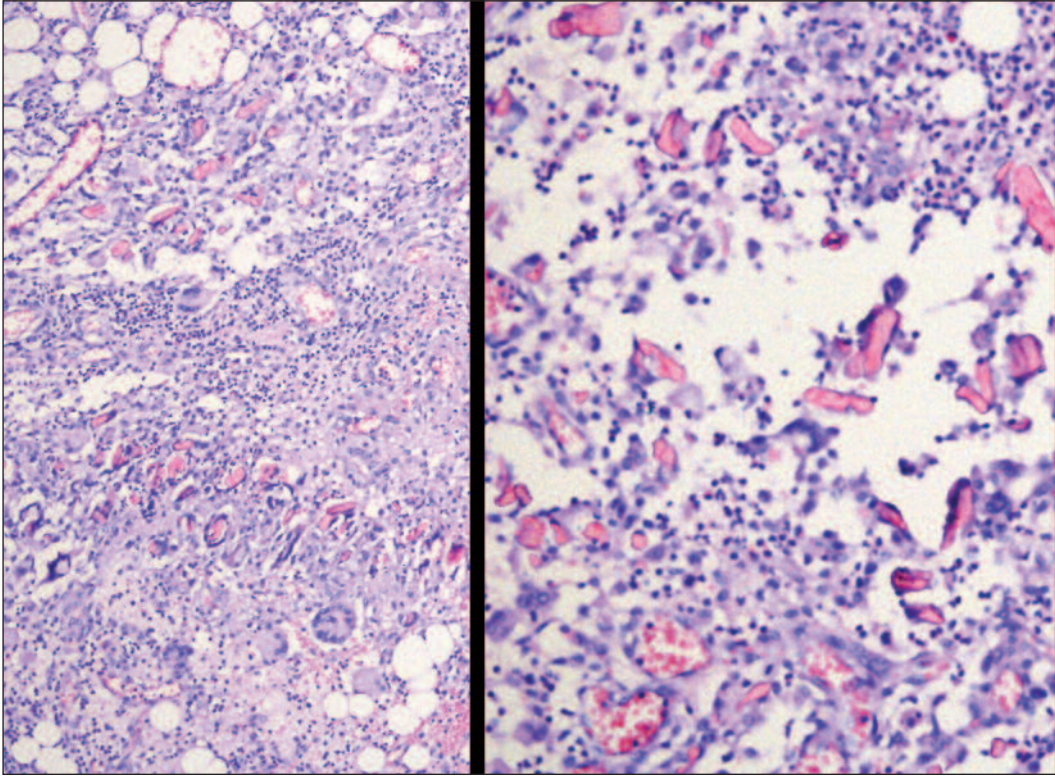


RESİM 2: Lenfosit infiltrasyonu içeren tükürük bezi alanları ve komşu kanamalı kristaloid içeren alanlar (HE-x40).

mikroskopta non-birefrenjan özelliindedir. Olgu, bu bulgularla birlikte alfa-amilaz kristaloid granülomu olarak değerlendirilmiştir. Olgu operasyondan sonraki altı aylık sürede izlenmiş olup, kitleye ait bir semptom veya yakınma söz konusu değildir.

TARTIŞMA

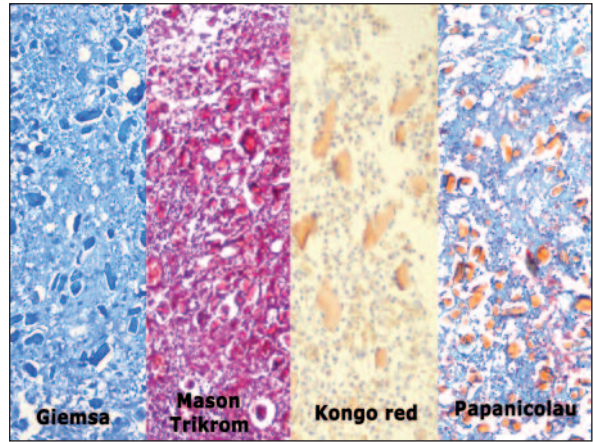
İlk kez 1983 yılında Takeda ve Ishikawa tarafından insan tükürük bezi duktus kistinde varlığı bildirilen amilaz kristalleri, Jayaram ve ark. tarafından da ilk kez 1993 yılında parotis uygulanan ince iğne aspirasyon biyopsisinde sitolojik olarak tanımlanmıştır.^{5,6} Daha sonra Johnson ve ark. ise bu kristaloid yapıları bazılarının alfa-amilaz kökenli olduğunu ve diğer bazı kristaloid yapılarından farklı olduğunu ortaya koymuşlardır.^{6,7} Tükürük bezi lezyon-



RESİM 3: Çok sayıda kristaloid yapısı ve komşuluğunda çok sayıda yabancı cisim tipi dev hücreler (HE-x100).

larında saptanan kristaloidin natürü ve birbirlerinden ayrımları, alfa-amilaz kristaloidlerinin çoğunlukla sialadenit ve kistik lezyonlarda görülürken, diğer kristaloid türlerinin ise neoplaziye eşlik etmesi nedeni ile, büyük önem taşımaktadır. Kristaloidler gerek ince iğne aspirasyon biyopsilerinde gerekse de rezeksiyon materyallerinde karşımıza çıkabilir.

Alfa-amilaz kristaloidleri morfolojik olarak birbirine paralel uzun kenarlara ve noktasal sonlanan uçlara sahiptir. Dikdörtgen şekillidirler ve karakteristik olarak mikroskopik görünümüleri “ataç benzeri” olarak tanımlanır.⁵ Bu yapılar histokimyasal olarak Papanicolau boyası ile canlı turuncu, Giemsa boyası ile derin mavi renkte boyanma özelliğindedir.^{7,8} Bizim olgumuzda da dilate duktusun içinde bazıları yabancı cisim tipi dev hücrelerce fagosite edilmiş, eozinofilik, yuvarlak-köşeli ya da romboid karakterde farklı şekillerde çok sayıda kristaloid görülmüştür. Bu kristaloidler histokimyasal olarak PAS (-), Mason Trikrom ile kırmızı, Papanicolau boyası ile turuncu, Giemsa boyası ile



RESİM 4: Soldan sağa, sırası ile Giemsa, Mason trikrom, Kongo red ve Papanicolau boyasında kristaloidlerin büyük büyütmede görünümü (x400).

ise derin mavi renkte boyanmıştır. Kristaller Kongo-red ile pozitif boyanma izlenmekle birlikte polarize mikroskopta non-birefrenjan özelliktedir. Olgumuzda da kristaloidler Kongo-red boyası ile kırmızı pembe renkte boyanmış, ancak polarize ışıkta birefrenjan görünümde olmadığı saptanmıştır. Olgumuzdaki kristaloid yapıları bu bulgular ışığı-

ğında “alfa-amilaz kristaloidleri” olarak değerlendirilmiştir. Olgumuzda yabancı cisim granülomu görülmekle birlikte nekroz izlenmemiştir.

Alfa-amilaz kristaloidlerinin oluşumundan asıl sorumlu mekanizma belirsiz olsa da, satüre tükürük salgısında fonksiyon göstermekte olan alfa-amilaz enzimi kaynaklı olduğu düşünülür. Önceki çalışmalardaki bulgular birlikte değerlendirildiğinde, tükürük salgısındaki staza bağlı kistik boşlukların oluşumu kristaloid oluşumu için kritik görünmektedir. Alfa amilaz, staz nedeni ile akışkan olmayan tükürük salgısı içerisinde yoğunlaşarak kistik boşluklarda kristalize olmaktadır. Sonrasında ise giderek artan intrakistik basınç nedeni ile, kristaloidlerin basısı sonucunda kist duvarı rüptüre olur. Kist dışına çıkan bu kristaloid yapılarına karşı konak tarafından yabancı cisim reaksiyonu gelişir ve granülom yapıları da meydana gelebilir.¹ Alfa-amilaz kristaloidleri tükürük bezinin kistik lezyonları ve sialadenit ile ilişkili olarak görülürken, diğer kristaloid türlerinin neoplastik lezyonlarla birlikteliği sıktır. Alfa-amilaz kristaloidi

içeren bir tükürük bezi lezyonunda lenfoepitelyal kist tanısı düşünülüyorsa, bu lenfoepitelyal kistin HIV enfeksiyonu ile birlikte görülebildiği mutlaka akılda tutulmalıdır.³ Alfa-amilaz kristaloidleri dışındaki tirozinden zengin ve kollajenöz kristaloidler özellikle pleomorfik adenomlarda; intraluminal kristaloidler ise malign tükürük bezi tümörlerinde izlenebilmektedir.^{2,9}

Özet olarak, alfa-amilaz kristaloidlerinin hemen daima benign lezyonu işaret ettiği akılda tutulmalıdır. Özellikle tükürük bezi ince iğne aspirasyonu materyalinde görülebilecek kristaloidin alfa-amilaz türü olduğunun ortaya konmasının, spesifik olmasa da, yalnızca benign lezyonlarda görülmesinden dolayı hastaya cerrahi uygulanmayabileceğini ileri süren araştırmacılar vardır. Ancak, literatürdeki kristaloid birikimi ile seyreden olguların sayıları son derece azdır. Bugün itibarıyla hastalara uygulanan cerrahi işlemin “gereksiz” olduğunu ileri sürmek, böyle bir yargıya varmak için daha çok sayıda olgu sunumuna ve serilere gereksinim vardır.

KAYNAKLAR

1. Yada N, Kashima K, Daa T, Urabe S, Kondo Y, Yokoyama S. α -amylase crystalloid granuloma of the parotid gland: case report and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2012; 114(6):e43-8.
2. Ro JY, Mackay B, Batsakis JG, Cartwright J Jr. Intraluminal crystalloids in malignant salivary gland tumors (electron microscopic and X-ray microanalytic studies). *J Laryngol Otol* 1987;101(11):1175-81.
3. López-Ríos F, Ballestín C, Martínez-González MA, Serrano R, de Agustín PP. Lymphoepithelial cyst with crystalloid formation. Cytologic features of two cases. *Acta Cytol* 1999;43(2):277-80.
4. Sáenz-Santamaría J, Catalina-Fernández I, Fernandez-Mera JJ. Sialadenitis with crystalloid formation. Fine needle aspiration cytodiagnosis of 15 cases. *Acta Cytol* 2003;47(1):1-4.
5. Jayaram G, Khurana N, Basu S. Crystalloids in a cystic lesion of parotid salivary gland: diagnosis by fine-needle aspiration. *Diagn Cytopathol* 1993;9(1):70-1.
6. Johnson FB, Oertel YC, Ammann K. Sialadenitis with crystalloid formation: a report of six cases diagnosed by fine-needle aspiration. *Diagn Cytopathol* 1995;12(1):76-80.
7. Kuwabara H, Ishizaki S, Akashi S, Yuki M, Shibayama Y. α -Amylase crystalloid granuloma in the parotid gland. *Diagn Cytopathol* 2014 Feb 19. doi: 10.1002/dc.23119. [Epub ahead of print]
8. Paker I, Anlar M, Genel N, Alper M. Amylase Crystalloids on Fine-Needle Aspiration of the Salivary Gland. *Turkish Journal of Pathology* 2010;26(2):153-55.
9. Ho C, Sasaki CT, Prasad ML. Crystalloid granulomas of the parotid gland mimicking tumor: a case report with review of the literature. *Int J Surg Pathol* 2013;21(3):282-6.