

УДК: 612.313.6+616.325

А.А. Блоцкий, В.В. Антипенко

ФГБОУ ВО Амурская ГМА Минздрава России
г. Благовещенск**ГЕТЕРОТОПИЯ СЛЮННЫХ ЖЕЛЕЗ В
ЯЗЫЧНУЮ МИНДАЛИНУ**

Под гетеротопией понимают закладку органа у зародыша в нетипичном месте, где происходит его дальнейшее развитие [6]. По данным литературы, описание случаев нетипичного расположения тканей слюнных желез встречается редко. Кроме слюнных свищей в верхних отделах шеи описана гетеротопия тканей слюнной железы в толщу нижней челюсти, миндалину, щечную мышцу, гортаноглотку, гортань, средостение, бронхи, щитовидную железу, пищевод, двенадцатиперстную, тощую и прямую кишку, среднее ухо, гипофиз, в область бифуркации сонной артерии, гениталии, лимфатические узлы [8-13].

Нельзя забывать и про саму язычную миндалину, которая подвержена гипертрофии, как и другие солитарные лимфаденоидные образования глотки, что приводит к появлению феномена храпа и синдрома обструктивного сонного апноэ (СОСА). Гипертрофия язычной миндалины завершается между 20 и 40 годами жизни и встречается у 22,9 % пациентов с различной патологией ЛОР-органов, чаще выявляют гипертрофию язычной миндалины у женщин, чем у мужчин. Выраженная гипертрофия язычной миндалины встречается редко [1, 2, 3, 4]. Причину гипертрофии язычной миндалины следует искать прежде всего во врожденную предрасположенность, которая активизируется благодаря ее анатомическому положению, частой травме грубой и острой пищей, влиянию вируса Эпштейна-Барра, викарному ее увеличению после хирургическо-

го удаления других элементов кольца Пирогова-Вальдейера, гастроэзофагеального рефлюкса, хронических воспалительных заболеваний носа, околоносовых пазух и глотки [1-5, 7].

Учитывая тот факт, что гетеротопия слюнной железы, расположенная в язычной миндалине, может достигать больших размеров и в сочетании с гипертрофией лимфоидной ткани самой язычной миндалины может приводить к нарушению дыхания обструктивного характера и даже летальным исходам у 6-11% больных, выявление больных с данной патологией и их своевременное лечение является чрезвычайно важной задачей [2, 3, 5].

В связи с редкой встречаемостью гетеротопии слюнной железы в язычной миндалине, трудностью ее визуализации, отсутствием единой тактики хирургического лечения каждый из случаев ее обнаружения требует тщательного описания и обсуждения.

Клинический случай

В качестве интересного случая приводим выписку из истории болезни №3614 больной Б., 44 лет, поступившей в лор-отделение ГАУЗ АО «Амурская областная клиническая больница» (АОКБ) 15.02.2016 г. с диагнозом «новообразование корня языка; киста язычной миндалины?» Больная была направлена оториноларингологом районной поликлиники на обследование и лечение в АОКБ. При опросе больная предъявляла жалобы на выраженную одышку при физической нагрузке, сильный и постоянный храп во время сна в любом положении тела, периодические остановки дыхания во время сна, утреннюю разбитость, эпизоды дневной сонливости, гнусавый оттенок голоса, чувство инородного тела в горле. Из анамнеза заболевания выяснено, что храп отмечает с детского возраста, гнусавый оттенок голоса появился около 7 лет назад, одышка стала беспокоить в течение последних 2 лет. На вышеуказанные жалобы не обращала внимания. Патология язычной миндалины была выявлена случайно во время медицинского ос-

Резюме Редкая встречаемость гетеротопии слюнных желез, трудности ее диагностики и отсутствие единого подхода к хирургическому лечению требует рассмотрения каждого отдельно выявленного случая. Между тем гетеротопия слюнной железы, расположенная в язычной миндалине, достигая больших размеров может приводить к появлению у пациента феномена храпа и синдрома обструктивного сонного апноэ тяжелой степени. В представленном клиническом наблюдении больная жаловалась на выраженную одышку при физической нагрузке, сильный и постоянный храп во время сна в любом положении тела, периодические остановки дыхания во время сна, утреннюю разбитость, эпизоды дневной сонливости, гнусавый оттенок голоса, чувство инородного тела в горле. Эндоскопически определялось новообразование округлой формы с четкими ровными контурами, покрытое гладкой слизистой оболочкой неизмененного цвета, исходящее из области язычной миндалины до 4,0 см в диаметре, резко сужающее просвет гортаноглотки. Компьютерная томография выявила новообразование язычной миндалины. При кардиореспираторном холтеровском мониторинге выявлен синдром обструктивного сонного апноэ тяжелой степени. Обсуждался вопрос о необходимости полного или частичного удаления атипично расположенных тканей при гетеротопии слюнных желез. В нашем клиническом наблюдении вследствие большого объема образования и возможного развития массивного кровотечения во время его удаления, было принято решение о частичной резекции образования с помощью высокоэнергетического лазера, что позволило гистологически диагностировать ткани слюнной железы, добиться в динамике значительного уменьшения ее размеров и сокращения количества эпизодов апноэ обструктивного характера.

Ключевые слова: гетеротопия слюнной железы, гипертрофия язычной миндалины, храп, синдром обструктивного сонного апноэ, высокоэнергетический лазер.

мотра оториноларингологом районной поликлиники, которым было рекомендовано КТ шеи для уточнения объема образования. После выполнения КТ, где было выявлено новообразование язычной миндалины, больная была направлена на дальнейшее обследование и оперативное удаление образования в лор-отделение АОКБ.

При поступлении в лор-отделение больной выполнен осмотр лор-органов. Мезофарингоскопия: слизистая оболочка полости рта и ротоглотки розовая, небные миндалины на уровне небных дужек, незначительно разрыхлены, патологического отделяемого в лакунах нет. На слизистой оболочке задней стенки глотки определяются единичные лимфоидные образования округлой формы без явлений воспаления. Эндоскопическая гипофарингоскопия: при осмотре гортаноглотки определяется новообразование округлой формы с четкими ровными контурами на широком основании, покрытое гладкой слизистой оболочкой неизмененного цвета, исходящее из области язычной миндалины до 4,0 см в диаметре, резко сужающее просвет гортаноглотки (рис. 1). Вход в гортань практически не визуализируется. При выполнении приема Мюллера было выявлено, что степень обструкции на гипофарингиальном уровне составила 90%, направление коллапса мягкотканых структур глотки отмечалось в переднезаднем направлении. При зондировании образование было на широком основании, имело плотную консистенцию, не смещалось (рис. 2).

При осмотре других лор-органов патологи-

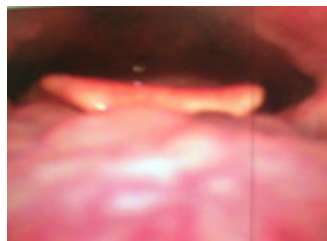


Рисунок 1.
Эндоскопическая гипофарингоскопия больной Б. 44 лет (гипертрофия язычной миндалины).

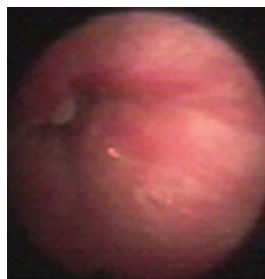


Рисунок 2.
Эндоскопическая гипофарингоскопия больной Б. 44 лет (гипертрофия язычной миндалины, гипофарингиальный уровень, степень обструкции – 90%).

ческих изменений не выявлено. Подчелюстные, шейные лимфатические узлы не пальпируются.

Рост пациентки – 160 см, вес на момент поступления составил – 86 кг, окружность шеи – 43 см, индекс массы тела (BMI, BMI = вес (кг)/рост² (см²)) – 33,6 кг/м².

По данным КТ мягких тканей шеи от 18.11.15 г. определяется новообразование, исходящее из коня языка, размерами 4,15 x 3,75 x 2,87 см, по интенсивности - мягкотканная структура (дермоидная киста?) (рис. 3).

В предоперационном периоде больной было выполнено кардиореспираторное холтеровское мониторирование, которое позволило сочетать холтеровское мониторирование в классическом виде со стандартным респираторным мониторингом (регистрация пневмограммы, спирограммы, запись храпа) с последующей оценкой эпизодов сонного апноэ, пульсоксиметрии с вычислением содержания кислорода в крови (сатурации).

Кардиореспираторное холтеровское мониторирование от 16.02.16 г.

Оценка нарушений дыхания. Время сна, пригодное для анализа: 06:57:30 (81% общего времени сна).

За время ночного сна зарегистрированы дыхательные нарушения: 233 апноэ, продолжительность от 10 до 126 сек., в общей сложности 01:30:50 (22%).

SALIVARY GLAND HETEROTOPIA IN THE LINGUAL TONSIL

A.A. Blotsky, V.V. Antipenko

FSBEI HE the Amur state medical Academy of the Ministry of Public Health of Russia, Blagoveshchensk

Abstract Rare occurrence of heterotopia in the salivary gland, difficulties of its diagnostics, the absence of the common approach to the surgical treatment require examination of every separately revealed case. Meanwhile heterotopia of the salivary gland located in the lingual tonsil, reaching big sizes may lead to the appearance of the snoring phenomenon and severe obstructive sleep apnea syndrome. In the presented clinical case the woman complained of the pronounced dyspnea in physical loading, severe and constant snoring during sleep in any body position, periodical apnea during sleep, the feeling of weakness in the morning, episodes of daytime somnolence, snuffing voice, the feeling of the foreign body in the throat. Endoscopy revealed neoplasm with precise equal outlines covered with smooth mucous membrane of the unchanged colour outgoing from the lingual tonsil in the diameter to 4,0 cm which sharply narrowed the laryngopharyngeal lumen. Computer tomography revealed neoplasm in the lingual tonsil. Cardiorespiratory Holter monitoring showed a syndrome of severe obstructive sleep apnea. The necessity of the complete or partial removal of atypical tissues in heterotopia of salivary glands was discussed. In this clinical case because of the large neoplasm and possible development of bleeding during its removal, we decided to perform partial resection with the help of a high-energy laser; it allowed to make histological analysis of salivary gland tissues, to reduce significantly its size in dynamics and to shorten the number of obstructive apnea episodes.

Key words: salivary gland heterotopia, hypertrophy of the lingual tonsil, snoring, obstructive sleep apnea syndrome, high-energy laser.

DOI 10.22448/AMJ.2019.1.72-76

Амурский медицинский журнал №1 (25) 2019

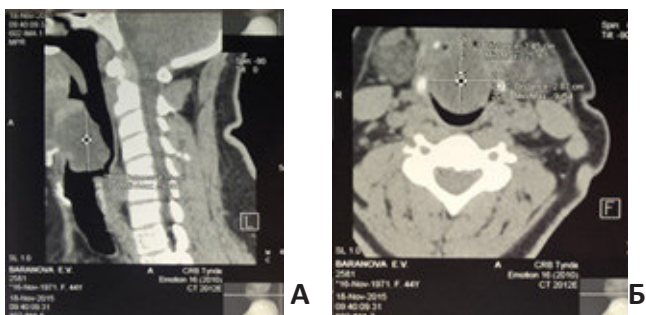


Рисунок 3. КТ мягких тканей шеи больной Б. 44 лет (а – сагиттальная проекция; б – аксиальная проекция; в – фронтальная проекция - новообразование язычной миндалины).



63 гипопноэ, в общей сложности 00:29:52 (7%).

Общая длительность апноэ/гипопноэ: 02:00:41 (29% анализируемого времени сна). ИАГ (индекс апноэ/гипопноэ) – 43, что соответствует тяжелой форме СОСА.

Число апноэ обструктивного характера 216 (92,1%), смешанного 0 (0%), центрального 17 (7,9%) (анализировалось 100% эпизодов).

296 (100%) апноэ/гипопноэ сопровождалось храпом (анализировалось 100% эпизодов). 8 (3%) апноэ/гипопноэ сопровождалось десатурацией (анализировалось 98% эпизодов).

Время сна, пригодное для анализа уровня насыщения крови кислородом: 08:27:30 (99% общего времени сна).

Средний/минимальный/среднемаксимальный уровень насыщения крови кислородом за период сна соответственно 94,4/ 89,1/ 95,9%. Средний минимальный уровень кислорода в эпизодах десатурации - 91,6%.

Индекс гипоксемии – 1. Суммарное время, при котором сатурация была менее 90%, - 8 сек.

Учитывая полученные данные дополнительных методов обследования, больной было рекомендовано хирургическое лечение. В виду больших размеров новообразования, практически полностью закрывающего гортаноглотку, была выбрана тактика двухэтапного хирургического вмешательства. Поскольку интубация трахеи для проведения эндотрахеального наркоза была невозможна, первым этапом была выполнена трахеотомия, которая позволила провести анестезиологическое пособие. Вторым этапом выполнялось лазерное иссечение новообразования. На операции 18.02.16 г. дополнительно использовались боковой роторасширитель с кремальерой, языкодержатель, анестезиологический ларингоскоп. Интраоперационная кровопотеря составила до 100 мл.

Послеоперационный период протекал без

осложнений. Больная деканюлирована через сутки после операции. Дыхание через естественные дыхательные пути свободное. Налет фибрина в области послеоперационного вмешательства сохранялся до 10 дней (рис. 4). Болевой синдром умеренный. Получала противовоспалительную местную, обезболивающую, антибактериальную терапию.

Результат гистологического исследования № 1895 от 24.02.16 г. – хронический сиалоаденит с отеком, склерозом и формированием кист.

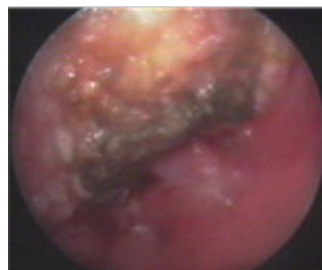


Рисунок 4. Эндоскопическая гипофарингоскопия - картина лазерированной поверхности язычной миндалины на 7 день после операции.

Полученный результат гистологического исследования показал наличие слюнной железы в резецированном материале. Гетеротопия слюнной железы с ее значительным увеличением является крайне редким патологическим состоянием, с которым мы столкнулись в нашем клиническом случае, приведшем к нарушению дыхательной функции у пациентки с появлением эпизодов апноэ обструктивного характера.

Послеоперационный период резекции малой слюнной железы, как правило, протекает без выраженных воспалительных явлений, но может сопровождаться уменьшением ее выделительной функции, что не влияет на функциональную активность больших слюнных желез.

На момент выписки картина гипофарингоскопии: на слизистой оболочке язычной миндалины определялись остатки налетов фибрина, полностью стал доступен осмотру вход в гортань и нижележащие отделы, надгортанник - по средней линии, голосовая щель - широкая, дыхание через естественные дыхательные пути свободное. Гнусавый оттенок голоса уменьшился. Больная выписалась к труду под дальнейшее наблюдение лор-врача и челюстно-лицевого хирурга с рекомендацией повторить КТ черепа и мягких тканей шеи, кардиореспираторное холтеровское мониторирование через 12 месяцев после операции.

Больная вновь была осмотрена 10.03.17 г. Жалобы не предъявляла, но отметила сохранение периодического храпа во время сна.

При проведении мезофарингоскопии было отмечено, что слизистая оболочка полости рта и ротоглотки - розового цвета, небные миндалины на уровне небных дужек, незначительно разрыхлены, патологического отделяемого в лакунах небных миндалин нет. На слизистой оболочке задней стенки глотки сохраняются единичные лимфоидные образования округлой формы без явлений воспаления. При проведении эндоскопической гипофарингоскопии определяется незначительное увеличение языч-

ной миндалины, которая покрыта гладкой слизистой оболочкой неизмененного цвета, вход в гортаноглотку и гортань свободен (рис. 5). При выполнении приема Мюллера было выявлено, что степень обструкции на гипофарингиальном уровне составила около 25%, направление коллапса мягкотканых структур глотки отмечалось в переднезаднем направлении.

При осмотре других лор-органов патологических изменений не выявлено. Подчелюстные, шейные лимфатические узлы не пальпируются.

Рост пациентки – 160 см, вес на момент повторного осмотра составил – 71 кг, окружность шеи – 42 см, индекс массы тела (BMI, $BMI = \text{вес (кг)} / \text{рост}^2 (\text{см}^2)$) – 27,7 кг/м².

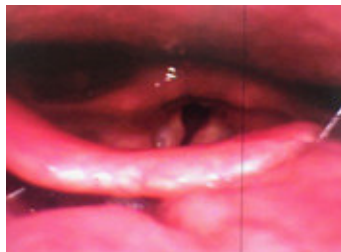


Рисунок 5.
Эндоскопическая картина гортаноглотки через 12 месяцев после операции, вход в гортаноглотку и гортань свободен.

По данным КТ черепа и мягких тканей шеи от 6.03.17 г. определяется незначительная гипертрофия язычной миндалины, размерами 1,10 x 1,32 x 1,17 см (рис. 6).

Рисунок 6. КТ шеи больной Б., 45 лет, через 1 год после операции, а - сагиттальная проекция; б – аксиальная проекция (определяется незначительное увеличение язычной миндалины, вход в гортаноглотку и гортань свободен).



А



Б

При повторном кардиореспираторном холтеровском мониторинге от 2.03.17 г. за время ночного сна выявлены нарушения дыхания:

23 апноэ, продолжительностью от 9 до 74 сек., в общей сложности 7 мин. 13 сек. (2%).

2 гипопноэ, продолжительностью от 11 до 16 сек, в общей сложности 0 мин. 27 сек. (0%).

Общая длительность апноэ/гипопноэ: 7 мин. 40 сек. (2% анализируемого времени сна (5 ч. 10 мин. 35 сек.).

ИАГ (индекс апноэ/гипопноэ) – 4, что соответствует норме.

Число апноэ обструктивного характера 23 (92%), смешанного 0 (0%), центрального 0 (0%) (анализировалось 100% эпизодов).

11 (44%) апноэ/гипопноэ сопровождалось

десатурацией (>4%) (анализировалось 96% эпизодов).

Минимально до 86%, при базовом уровне – 93,4%.

Средний уровень кислорода в эпизодах десатурации - 88,35 (45%).

25 (100%) апноэ/гипопноэ сопровождалось храпом (анализировалось 100% эпизодов). В сравнении с предыдущим кардиореспираторным холтеровским мониторингом от 16.02.16 г. отмечается положительная динамика.

Обсуждение полученных результатов

Описан редкий случай гетеротопии слюнных желез в язычной миндалине, приведшей к появлению синдрома обструктивного сонного апноэ тяжелой степени.

Результат гистологического исследования не выявил присутствия лимфоидной ткани, что подтвердило гетеротопию слюнной железы. Нахождение ткани слюнной железы в язычной миндалине является редким явлением. По данным литературы, возраст больных с гетеротопией слюнных желез колеблется от рождения до 81 года [12]. Размеры атипично расположенного образования напрямую зависят от возраста пациента и долгого отсутствия патогномичной симптоматики [8]. В нашем клиническом случае заболевание характеризовалось постепенным увеличением слюнной железы в язычной миндалине под не измененной слизистой оболочкой без каких-либо признаков ее самостоятельного дренирования. Диагноз устанавливается только по гистологическому исследованию операционного материала и позволяет исключить опухолевый процесс, локализующийся в язычной миндалине. Затруднение гистологической диагностики при верификации гетеротопии слюнных желез может быть обусловлено явлениями хронического воспаления, лимфоидной инфильтрацией, фиброматозом тканей и развитием метаплазии [12], которые являются вторичными и обусловлены физическим давлением продуцируемого секрета при отсутствии дренажа [8].

Существуют различные взгляды на хирургическое лечение гетеротопии слюнных желез, а именно - полное или частичное ее удаление. Некоторые авторы являются приверженцами полного удаления, что, по их мнению, исключало бы в последующем развитие повторной ее гипертрофии или малигнизации под влиянием ряда неблагоприятных факторов. Другая часть авторов отстаивает необходимость лишь частичного удаления, что обеспечивает сохранение ее функции. В нашем наблюдении вследствие большого размера образования, очень высокого риска развития кровотечения при ее полном удалении было принято решение отказаться от радикального оперативного лечения, выполнить частичное иссечение ее высокоэнергетическим лазером и продолжить динамическое наблюдение за больной. Значительное уменьшение образования при повторном осмотре больной, положительные результаты кардиореспираторного холтеровского мониторинга, отсутствие рецидива в течение 12 месяцев наблюдения позво-

лили считать оправданной выбранную тактику оперативного лечения у данной больной.

Заключение

Представленный клинический случай гетеротопии слюнных желез представляет клинический интерес в связи с редкой встречаемостью и продемонстрировал эффективность примененной щадящей хирургической тактики при данной патологии. Длительное бессимптомное течение патологического процесса привело к позднему обращению пациентки за помощью врача-оториноларинголога, а локализация и большие размеры создавали трудности не только при хирургическом лечении, но и при проведении анестезиологического пособия, что в данном конкретном случае привело к необходимости проведения двухэтапного хирургического вмешательства.

Литература

1. Бабияк В.И, Накатис Я.А. Клиническая оториноларингология. Руководство для врачей. СПб.: Гиппократ, 2005. 797 с.
2. Блоцкий А.А., Плужников М.С. Феномен храпа и синдром обструктивного сонного апноэ. СПб.: СпецЛит, 2001. 176 с.
3. Блоцкий А.А. Синдром обструктивного сонного апноэ / А.А. Блоцкий, М.С. Плужников // Вестник оториноларингологии. 2008. №4. С. 78-80.
4. Гришунина О.Е. Радиочастотная редукция и резекция язычной миндалины при ее гипертрофии / О.Е. Гришунина, Т.А. Сергеева, М.Г. Лейзерман // Кремлевская медицина. Клинический вестник. 2013. №1. С.23-26.
5. Зильбер А.П. Синдромы сонного апноэ. Петрозаводск, 1994. 183 с.
6. Калмин О.В. Аннотированный перечень аномалий развития органов и частей тела человека: Учебно-методическое пособие. / О.В. Калмин, О.А. Калмина. Пенза: ПГУ, 2000.
7. Лейзерман М.Г. Алгоритм диагностики и лечения гиперплазии язычной миндалины / М.Г. Лейзерман, О.Е. Гришунина, М.В. Гунчиков // Актуальное в оториноларингологии. VI научно-практическая конференция оториноларингологов Центрального федерального округа РФ. Москва, 2011. С.13.
8. Рябова М.А. Случай гетеротопии слюнных желез в гортани / М.А. Рябова, Н.А. Шумилова // Folia otorhinolaryngologiae et Pathologiae Respiratoriae. 2018. 24 (1). С. 71-77.
9. Хирургическая стоматология и челюстно-лицевая хирургия: нац. рук. Под ред. А.А. Кулакова, Т.Г. Робустовой, А.И. Неробеева. М: ГЭОТАР-Медиа, 2010.
10. Чумаков Ф.И. Слюнная железа в гортани / Ф.И. Чумаков, Г.А. Авдеева // Вестник оториноларингологии. 1982. С. 76-77.
11. Yilmaz R.R., Şehitoglu 1., Dursun E. Salivary

Gland Choristoma of the Larynx. Balkan Medical Journal. 2017;34(3):288-289. doi: 10.4274/balkanmedj.2016.0657.

12. Sotorra-Figueroa D., Almendros-Marques X., Espana-Tost A.J., Valmaseda-Castellon E., Gay-Escoda'. Salivary gland choristoma in the buccinator muscle: A case report and literature review. 2015;7(4):540-543. doi: 10.4317/jced.52391.

13. Hsu R.F., Hsu Y.C., Huang S.C. Hereditary ectopic salivary gland: Survey of three generations. Acta Oto-Laryngologica. 2006; 126:330-333. doi: 10.1080/00016480500389008.

Статья поступила 20.02.2019

Координаты для связи

Блоцкий Александр Антонович, д.м.н., профессор, зав. кафедрой оториноларингологии и офтальмологии ФГБОУ ВО Амурская ГМА Минздрава России. E-mail:blotskiy@gmail.com

Антипенко Виктория Викторовна, к.м.н., доцент кафедры оториноларингологии и офтальмологии ФГБОУ ВО Амурская ГМА Минздрава России. E-mail:antivika4@gmail.com

Почтовый адрес ФГБОУ ВО Амурская ГМА Минздрава России: 675006 Амурская область, г. Благовещенск, ул. Горького, д. 95. E-mail: AmurSMA@AmurSMA.su, science.dep@AmurSMA.su