

Anno VII, N.1 - marzo 2016 / Year VII, N.1 - march 2016

Frontiera ORL

Periodico di Otorinolaringologia, Patologia Cervico Facciale, Audiologia e Foniatria
Periodic of otolaryngology, cervico-facial pathology, audiology and speech therapy

www.frontieraorl.it



numero speciale / special number
**LA GESTIONE DELLA
METASTASI LINFONODALE:
APPROCCI INNOVATIVI
INTEGRATI**
CONGRESSO / CONGRESS

ISSN 2038-4793

Tumore di Warthin della parotide: grave complicanza dopo esecuzione del FNAC

Warthin tumor of the parotid gland: severe complication after FNAC

F. Ricciardiello, T. Abate, A. M. Di Lullo, V. Della Peruta, F. Brando, E. Cantone, M. Mesolella

Dipartimento Testa collo, UOC Otorinolaringoiatria, AOU Policlinico Federico II, Napoli

Abstract

La Fine-Needle Aspiration Citology (FNAC) è una procedura minimamente invasiva, diffusamente utilizzata nella diagnosi delle tumefazioni delle ghiandole salivari. Il suo ruolo nella valutazione preoperatoria è ancora discusso. L'agoaspirato è una metodica di agevole esecuzione con rare complicanze. In questo caso clinico descriviamo un paziente affetto da tumore di Warthin con ascesso parotideo e paralisi del nervo faciale quali complicanze dopo l'esecuzione di FNAC della ghiandola parotide.

Introduzione

La Fine-Needle Aspiration Citology (FNAC) è una procedura minimamente invasiva, ben tollerata, semplice, ripetibile e diffusamente utilizzata nella diagnosi delle tumefazioni delle ghiandole salivari.

In letteratura esistono pareri contrastanti relativamente al ruolo di tale indagine. Aina (2009) sottolinea come la FNAC risulti parzialmente sensibile nell'identificare le lesioni parotidiche maligne (64%) con un elevato numero di falsi negativi, mentre più alta risulta essere la specificità (98,7%), il valore predittivo positivo (91%) ed il valore predittivo negativo (92%)¹. Su questi presupposti la FNAC, in alcuni casi, potrebbe avere una scarsa rilevanza nella programmazione chirurgica.

L'agoaspirato è una metodica di agevole esecuzione con rare complicanze. Sono stati documentati in letteratura episodici casi di complicanze gravi quali emorragie, cellulite

Abstract

The Fine-needle aspiration cytology (FNAC) is a minimally invasive procedure, widely used as diagnostic tool to evaluate lesions of the salivary glands. The role of FNAC in the pre-operative evaluation is not universally established. Fine-needle aspiration is a method of easy execution and with few complications. We describe a case of a Warthin tumor with parotid abscess and facial paralysis as a complications of FNAC parotid gland.

Introduction

The Fine-needle aspiration cytology (FNAC) is a minimally invasive procedure, well-tolerated, simple, safe, widely used as diagnostic tool to evaluate lesions of the salivary glands.

In literature there are conflicting opinions regarding the role of this procedure. In fact some authors emphasize that the FNAC is insufficiently sensitive to identify the malignant lesions of the parotid (64%) with high number of false negatives, while higher turns out to be the specificity (98,7%), positive and negative predictive values were 91% and 92%, respectively. For these reasons, the FNAC could have little relevance on surgical planning. Fine-needle aspiration is a method of easy execution and with few complications. Infrequently, serious complications are recorded in literature such as bleeding, cellulite and subcutaneous necrosis, lesions of nerve as the facial nerve paralysis or vascular injuries. Some authors also report the possible transformation metaplastic tumor Warthin. We describe a case of parotid abscess with facial paralysis as a complication of FNAC parotid gland.



e necrosi sottocutanea, lesioni nervose specie paralisi del facciale o vascolari².

Descriviamo un caso clinico di ascesso parotideo con paralisi del facciale come complicanza di FNAC della ghiandola parotide.

Materiali e metodi

Case report

Giunge alla nostra osservazione un paziente (P.F.) di 45 anni, maschio, con una tumefazione parotidea destra comparsa nel maggio 2015 e progressivamente aumentata di volume.

Il paziente portava in visione una Ecografia (4/7/15) che evidenziava una formazione nodulare solida al polo inferiore della ghiandola parotide destra di circa 4x3x3 cm ad ecostruttura disomogeneamente iso-ipoecogena, con area anecogena nella porzione anteriore. L'ecografia, inoltre, riscontrava nel contesto della ghiandola ed in regione laterocervicale destra piccole nodulazioni linfonodali. (Fig.1)

Il paziente eseguiva, quindi, TC (14/7/15) che rilevava una formazione ovoidale a contorni regolari di circa 3x2,5x3 cm nella parotide dx dalla densità mista con componente superficiale ipodensa che non si modifica dopo mdc ed una componente profonda di densità solida che si impregna dopo mdc.

Come da nostro protocollo diagnostico eseguiva una FNAC della tumefazione parotidea (27/7/15) che risultava sospetto per carcinoma muco epidermoide della parotide.

A distanza di 5 giorni dall'agoaspirato il paziente presentava dolorabilità, cute sovrastante la lesione intensamente iperemica, aumento di volume della tumefazione ed una paralisi del facciale periferica omolaterale corrispondente al III grado di House-Brackmann. Apyrexia. Valori ematochimici nei limiti della norma.

Praticava, perciò, terapia medica antibiotica – Ceftriaxone 1gr 1 flim/die ed antinfiammatoria – Betametasona 1,5 mg 1 flim/die, senza significative variazioni del quadro clinico.

La RM (19/8/15) mostrava una grossolana tumefazione della parotide destro-circa 4x3x2,5 cm- dal segnale disomogeneamente ipointenso in T1, irregolarmente iperintenso

Materials and methods

Case report

A patient (PF) 45-year-old male, comes to our attention, with a right parotid swelling appeared in May 2015, gradually increased in volume. The patient carried a U.S. (04.07.15) which showed a solid nodular formation at the inferior pole of right parotid about 4x3x3 cm with a structure heterogeneously iso-hypoechoic, with anechoic anterior area.

Furthermore, US spotted small nodules in the context of the gland and lymph node region lat-



Fig. 1. Ecografia.

erocervical dx (Fig.1).

The patient carried out a CT (7/14/15) which noted a oval formation with regular contours of approximately 3x2,5x3 cm in the right parotid with density mixed with a hypodense surface component that does not change after the contrast agent and a deep component density solid, enhancing after contrast agent. According to our diagnostic protocol he performed a FNAC of parotid swelling (7/27/15) that appeared suspicious to mucus epidermoid carcinoma of the parotid gland. Five days after the FNAC the patient had pain, hyperemic skin over the lesion, increase in volume of the swelling and paralysis of the ipsilateral facial corresponding to grade III of House-Brackmann. Apyrexia. Serum chemistry values were within normal limits. He practiced, therefore, medical therapy, 1 fl Ceftriaxone 1g in/die and a betamethasone 1.5 mg 1 flim/die, without a substantial clinic mutation.

MRI (8/19/15) showed a gross swelling of the



in T2 con porzione periferica ed inferiore solida rispetto a quella superiore di tipo necrotico cistico con irregolari inclusi. Dopo mdc si osservava in intensa concentrazione di contrasto nella porzione esterna di tale formazione con migliore definizione della porzione semifluida interna. Assenti significative adenopatie delle stazioni laterocervicali (Figg. 2).

parotid right—about 4x3x2,5 cm—heterogeneously hypointense on T1, hyperintense on T2 with irregular peripheral portion and lower solid than the upper necrotic cystic with irregular inclusions. After contrast an intense concentration of contrast was noticed in the outer portion of this formation with better definition of the semi-fluid portion inside. Absent significant lateral cervical lymphadenopathy (Figg 2).



Figg. 2. RM.

A distanza di tre settimane dell'esecuzione della FNAC il paziente presentava un quadro clinico ingravescente con persistenza della paralisi, dolorabilità e fistolizzazione cutanea della lesione, ciò supportava il sospetto di carcinoma (Fig. 3).

Three weeks after the FNAC the patient had a clinical worsening with persistent paralysis, pain and a fistula skin, which supported the suspicion of cancer (Fig 3).

Il paziente veniva sottoposto (09/09/15) a parotidectomia totale con preservazione del nervo faciale e svuotamento linfonodale laterocervicale del livello IIa destro che era inviato per esame istologico intraoperatorio (negativo per malignità).



Al risveglio la funzionalità del nervo faciale destro era ripristinata.

L'esame istologico definitivo sul pezzo operatorio ha mostrato la presenza di un "tumore di Warthin della ghiandola parotide destra".

Il decorso post-operatorio è stato regolare. La dimissione è stata effettuata dopo 4 giorni dall'intervento.

Figg. 3



A distanza di circa tre mesi dall'intervento il paziente non presenta deficit ovvero paralisi del VII, nè complicanze relative all'intervento o recidive di patologia (Fig. 4, 5).

Discussione

Il caso oggetto di presentazione si presta alle seguenti considerazioni:

- Possibilità di over-treatment nella patologia parotidea;
- Complicanze della FNAC.

La scelta terapeutica di effettuare una parotidectomia totale con conservazione del facciale e svuotamento latero-cervicale selettivo è stata condizionata da diversi fattori che depongono erroneamente verso la presenza di una patologia tumorale maligna a rapida evolutività; ed in particolare:

1. Da una erronea lettura dell'esame da parte del patologo indicativo di "sospetto di carcinoma muco epidermoide";
2. Dalla comparsa di una rara complicanza del FNAC rappresentata da cellulite con ascesso parotideo che ha favorito l'insorgenza di una paralisi del facciale periferica da compressione, la fistolizzazione della cute sovrastante la lesione, l'aumento di volume e di dolorabilità della tumefazione;
3. Dall'imaging di dubbia interpretazione con presa di contrasto parziale della lesione;
4. Dalla assenza di responsività alla terapia medica antibiotica ed antiflogistica prescritta.

Benchè la FNAC sia ampiamente affidabile nell'identificare lesioni di natura linfoproliferativa e metastatica, nel caso descritto ha mostrato una scarsa specificità ed una scarsa accuratezza di benignità. La maggioranza dei casi falsi negativi dipende da errori di campionamento, dovuti alla coesistenza di caratteristiche citologiche di benignità e malignità nell'ambito della stessa lesione e alla eterogeneità cellulare di alcune forme istotipiche tra le quali il carcinoma muco-epidermoide.

Il falso positivo, come nel caso da noi descritto, è più raro e per lo più legato ad artefatti od a sopravvalutazioni di anomalie di tipo reattivo.



Fig. 4.



Fig. 5.

The patient underwent a total parotidectomy with preservation of facial nerve and laterocervical level IIa right dissection that was sent for histological intraoperative examination (negative for malignancy). Upon awakening the functionality of the right facial nerve it was recovered. Histological definitive examination showed the presence of a "Warthin cancer of the right parotid gland". The postoperative course was uneventful. The patient was discharged 4 days after surgery. About three months after surgery, the patient does not have nerve deficits or paralysis of the seventh, nor complications related to surgery or recurrent disease (Figg. 4, 5).



Il tumore di Warthin è caratterizzato citologicamente dalla commistione di linfociti maturi ed immaturi e di cellule ossifile; l'attenta ricerca ed il riconoscimento di elementi oncocitari è di estrema importanza per evitare diagnosi erronea di carcinoma muco epidermoide.

Comunque il valore predittivo istotipo-specifico della FNAC nella diagnosi di varie lesioni parotidiche è risultato essere molto alto con percentuali variabili dal 100% all'85% (adenoma pleomorfo 94,6%, cistoadenolinfoma 91,4%, tumore maligno primitivo 85%, tumore maligno metastatico 100%, linfoma 100%). Più complesso appare il riconoscimento delle forme flogistiche-cistiche con percentuali di attendibilità diagnostica del 43,9%¹⁴.

Indubbiamente la modalità di esecuzione del prelievo, l'adeguatezza del campione e l'esperienza del patologo sono fattori imprescindibili per una corretta interpretazione dell'esame.

Da una revisione della letteratura, le complicanze riportate in seguito all'esecuzione di ago aspirato parotideo (FNAC) sono risultate rare; esse sono rappresentate da complicanze minori (iperemia localizzata alla sede del prelievo, edema, cellulite sottocutanea di lieve entità). Talvolta, molto raramente, possono verificarsi complicanze più gravi che possono insorgere immediatamente dopo esecuzione dell'esame (emorragie, lesioni nervose, flogosi acute) o più tardivamente (fibrosi). Tali complicanze tuttavia si ritiene essere ridotte al minimo con il supporto di mezzi di imaging quali la guida ecografica, la T.C., la R.M.N.

Bahar et al, hanno riportato 5 casi di parotite acuta insorta dopo l'esecuzione di FNAC su 256 lesioni parotidiche³. L'Autore segnala inoltre come nel tumore di Warthin la combinazione di spazi cistici circondati da cellule oncocitiche con piccole afferenze vascolari è fattore favorente nel corso del FNAC di flogosi locali con colliquazione cellulare.

Nel caso presentato il sospetto diagnostico ci ha indotto a praticare in prima istanza una parotidectomia totale con eventuale preservazione del VII e svuotamento latero-cervicale omolaterale. L'esame istologico del pezzo operatorio ha evidenziato che si trattava di

Discussion

The Authors report a case of a patient with cancer of the parotid Warthin where therapeutic treatment is complicated and probably excessive in relation to the real disease entity that the patient was suffering. The treatment choice of making a total parotidectomy with preservation of facial and selective latero-cervical dissection was conditioned by several factors that deposed erroneously to the presence of a malignant tumor pathology with fast growth; and particularly:

- 1. The appearance of a rare complication of FNAC represented by cellulite with parotid abscess that favored the onset of paralysis of the peripheral facial compression, skin fistula over the lesion, the increase in volume of the swelling and tenderness;*
 - 2. A misreading of the examination by the pathologist indicative of "suspicion of muco epidermoid carcinoma";*
 - 3. Dubious interpretation of imaging with partial contrast enhancement of the lesion;*
 - 4. The lack of responsiveness to medical treatment with antibiotic and anti-inflammatory.*
- Each of these aspects, as mentioned, wrongly directed towards the presence of a malignant tumor and therefore it was decided to a more extensive surgical resection. The complications reported in the literature following the execution of parotid needle aspiration (FNAC) are quite rare; they are represented by minor complications (hyperemia, edema, minor cellulite subcutaneous).*

Sometimes, on rare occasions, more serious complications can occur: they may appear immediately after execution of the examination (bleeding, nerve damage, acute inflammation) or much later (fibrosis). These complications, however, are reduced to a minimum with the help of means of imaging such as ultrasound guidance, CT, MRI.

Bahar et al, have reported five cases of acute parotitis onset after performing FNAC of 256 parotid lesions³.

The Author indicates as in the tumor of Warthin, the combination of cystic spaces surrounded by oncocytic cells with small vascular afferents is a risk factor, during the FNAC, of local inflammation with colliquation cell.

Although the FNAC is widely reliable to iden-



“Tumore di Warthin della ghiandola parotide di destra” correggendo di fatto la diagnosi dell'esame FNAC che deponava invece per la presenza di “carcinoma muco epidermoide”.

Nel corso dell'intervento l'assenza di una macroscopica infiltrazione neoplastica parotidea e del nervo facciale, a fronte di un quadro invece suggestivo per patologia flogistica concomitante, ha permesso di conservare il nervo facciale che è stato ricercato ed evidenziato per via anterograda-centrifuga. Va rilevato che il nervo marginalis mandibulae risultava imbrigliato “a manicotto” da aderenze fibrose (Fig. 6).



Fig. 6.

È stato effettuato lo svuotamento latero-cervicale superselettivo del livello IIa omolaterale che è risultato negativo all'esame estemporaneo e definitivo per la presenza di metastasi linfonodali. In accordo con la letteratura, gli autori hanno avuto un atteggiamento conservativo nei confronti del nervo facciale anche in caso di paralisi preoperatoria; nei tumori maligni della

tipify the nature of lymphoproliferative lesions and metastatic, in the case described it showed a low specificity and poor accuracy of benignity.

The majority of cases false negatives depends on sampling errors, due to the coexistence of benign and malignant cytologic characteristics within the same lesion and cellular heterogeneity of some histotypic forms including muco-epidermoid carcinoma. The false positive, as in the exposed case, is more rare and mostly linked to artifacts or overvaluation of anomalies of the reactive type.

Warthin tumor is characterized cytologically by the mixture of mature and immature lymphocytes and cells ossifile; Warthin tumor is histologically characterized by the mixture of mature and immature lymphocytes and oncocytic cells; the careful research and recognition of oncocytic elements are extremely important to prevent erroneous diagnosis of muco-epidermoid carcinoma. However, the predictive value of histological type, specific for the FNAC in the diagnosis of various parotid lesions, is very high varying from 100% to 85% (pleomorphic adenoma 94.6%, 91.4% cystadenolymphoma, primary malignant tumor 85%, malignant metastatic 100%, 100% lymphoma). More complex appears the recognition of the forms phlogistic-cystic with percentages of diagnostic reliability of 43.9%14. Undoubtedly, the mode of execution of the sample taking, the adequacy of the sample and the experience of the pathologist are essential factors for a correct interpretation of the test. In the above case the suspected diagnosis led us to practice in the first instance a total parotidectomy with possible preservation of the seventh and ipsilaterallatero-cervical dissection. Histological examination showed that it was “Warthin tumor of the parotid gland to the right”, correcting diagnosis examination of FNAC that deposed instead for the presence of “muco-epidermoid carcinoma”. During surgery, the absence of a macroscopic tumor infiltration of the parotid and of the facial nerve, in a context indicating pathology concomitant inflammatory, allowed to preserve the facial nerve that has been searched and highlighted by anterograda-centrifuge way. The nerve marginalis mandibulae was harnessed “pinch” from fibrous adhesions (Fig.6).

It was made selective ipsilaterallatero-cervical dissection of level IIa which was negative in



parotide è possibile effettuare sistematicamente il sacrificio del tratto neurale infiltrato solo in caso di interessamento macroscopico del VII, procedendo, poi, alla sua ricostruzione immediata con tecniche microchirurgiche^{5,6}. È opportuno ricordare che i tumori benigni (anche se di grande volume o recidivi) possono determinare dislocazione e compressione del nervo facciale ma mai in filtrazione diretta. Per la fistola cutanea è stata asportata 0,8 cm di cute circostante, risultata all'esame intraoperatorio negativo per presenza di cellule maligne.

Conclusioni

Gli Autori riportano il caso di un paziente affetto da tumore di Warthin parotideo il cui trattamento terapeutico è risultato essere complicato e probabilmente eccessivo; infatti la sia la erronea lettura che la complicità della FNAC hanno simulato un quadro clinico di patologia maligna, in quest'ottica il caso clinico presentato è emblematico per segnalare le possibili difficoltà nell'inquadramento diagnostico delle tumefazioni parotidiche e le conseguenti "incertezze" terapeutiche.

Tuttavia, considerando la nostra esperienza e la letteratura, l'ago aspirato resta un esame fondamentale e imprescindibile nell'approccio alle tumefazioni parotidiche, infatti esso consente, nella maggioranza dei casi, di programmare adeguatamente il successivo iter diagnostico-terapeutico.

Gli Autori sottolineano che, anche in caso di paralisi pre-operatoria, è opportuno seguire un atteggiamento conservativo nei confronti del nervo facciale, sacrificandolo solo in caso di evidente infiltrazione neoplastica. Nel caso descritto un approccio chirurgico meno aggressivo ne ha consentito di preservarne adeguatamente la funzione.

the extemporaneous and final histologic for the presence of lymphnode metastases. According to the literature, the authors have a conservative attitude towards the facial nerve even in case of preoperative paralysis; in malignant tumors of the parotid is possible to sacrifice systematically the neural infiltrated tract only in case of macroscopic involvement of the seventh, proceeding, then, to his immediate reconstruction with microsurgical techniques^{5,6}. Benign tumors (although large volume or tumor recurrence) can cause dislocation and compression of the facial nerve but cannot direct infiltration. For the cutaneous fistula was excised 0.8 cm of surrounding skin, intraoperative examination proved negative for the presence of malignant cells.

Conclusions

The authors reported a case that created a difficulty in planning the surgery because there were erroneous instrumental preoperative clinical data. Despite the appearance of a rare complication caused by FNAC that simulated a medical case of malignant disease, this method remains a fundamental and indispensable examination in diagnosis of parotid lesions which allows in most cases to program satisfactorily the next diagnostic and therapeutic procedure. The authors point out that, even in the case of a pre-operative paralysis, it is necessary to follow a conservative approach towards the facial nerve, sacrificing it only in case of clear neoplastic infiltration. In the case described a less aggressive surgical approach has allowed to adequately preserve its function.

Bibliografia - References

1. Aina E, *Argomenti di Acta Otorinolaringoiatrica Italica* 2009; 3: 7-9.
2. Jiamis K, et al, *Int J Surg Case Rep.* 2013; 4(11): 1021-1024.
3. Bahar G, et al, *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2006 Apr; 134(4):646-9.
4. Fakiry N, Antonizia F, et al *European Annals of Otorhinolaryngology, Head and Neck diseases* (2012); 129, 131-136.
5. Vainan M, Atsitta R, et al. *Acta Otorhinolaryngologica* 2015 Dec; 135(12):1319-1322.
6. Schulz Maahs G, De Oliveira Oppermann P, et al. *Brazilian Journal of Otorhinolaryngology* 2015; 81(3):301-306.

