

Osteóm čuchového labyrintu u detského pacienta – kazuistika

Osteoma of the ethmoid sinus in a pediatric patient – a case report

Očkajová S^{1,2}, Bugová G.³, Hajtman A.²

¹ Oddelenie otorinolaryngológie FNsP F. D. Roosevelta, Banská Bystrica, Slovenská republika

² Klinika otorinolaryngológie a chirurgie hlavy a krku, Jesseniova lekárska fakulta v Martine, Univerzita Komenského v Bratislave, Univerzitná nemocnica Martin, Slovenská republika

³ Oddelenie otorinolaryngológie, FNsP Žilina, Slovenská republika

Súhrn

Východiska: Osteómy prinosových dutín sa v pediatrickej populácii vyskytujú zriedkavo, v literatúre nájdeme len málo údajov o symptomatických osteómoch. Názory na indikáciu na operačnú liečbu sú kontroverzné. **Prípad:** Autori opisujú pacienta – 12-ročného chlapca so symptomatickým osteómom čuchového labyrintu vpravo, ktorý bol liečený chirurgicky – endoskopickým endonazálnym prístupom. Diskutovaná je symptomatológia, diagnostika a terapia týchto nádorov u detského pacienta. **Záver:** Osteómy prinosových dutín sú pomaly rastúce benigne lézie. Symptomatické osteómy môžu rásť expanzívne a spôsobiť závažné komplikácie. Liečba osteómu je chirurgická a endoskopický prístup ponúka možnosť bezpečného odstránenia s kozmetickými výhodami.

Kľúčové slová

osteóm – nádory nosa a prinosových dutín – detská populácia

Summary

Background: Osteomas of the paranasal sinuses occur rarely in the pediatric population, we find only a few reference of symptomatic osteomas in the literature. Opinions on the indication for surgical treatment are controversial. **Case:** The authors present a case of symptomatic osteoma of the right ethmoidal sinus in a 12-year-old boy, who was treated surgically, with endoscopic endonasal approach. The symptomatology, diagnosis and therapy of these tumors in the pediatric patient are discussed. **Conclusion:** Osteomas of the paranasal sinuses are slow-growing benign lesions. Symptomatic osteomas can grow expansively and cause serious complications. The treatment of osteoma is surgical and the endoscopic approach offers the possibility of removal with cosmetic benefits.

Key words

osteóm – nádory nosa a prinosových dutín – detská populácia

Autoři deklarují, že v souvislosti s předmětem studie nemají žádné komerční zájmy.

The authors declare that they have no potential conflicts of interest concerning drugs, products, or services used in the study.

Redakční rada potvrzuje, že rukopis práce splnil ICMJE kritéria pro publikace zaslané do biomedicínských časopisů.

The Editorial Board declares that the manuscript met the ICMJE recommendation for biomedical papers.



MUDr. Simona Očkajová
ORL oddelenie, FNsP F. D. Roosevelta
Námestie L. Svobodu 1
974 01 Banská Bystrica
Slovenská republika
e-mail: spechacova@gmail.com

Obdržané/Submitted: 8. 9. 2022

Prijaté/Accepted: 21. 10. 2022

doi: 10.48095/ccko2023146

Úvod

Osteómy sú benígne, pomaly rastúce a dobre ohraničené tumory. V ORL oblasti najčastejšie vznikajú v paranasálnych dutinách a to hlavne v čelových a čuchových, v tesnej blízkosti nazofrontálneho ústia [1,2]. Vyskytujú sa u ľudí v medzi 40. a 60. rokom života [3,4]. U detí sú diagnostikované zriedkavo [5,6]. Osteómy sú väčšinou asymptomatické a často sa jedná o náhodný nález pri zobrazovacom vyšetrení [6–8].

V kazuistike prezentujeme pacienta – 12-ročného chlapca s osteómami v oblasti tvárového skeletu.

Prípad

Chlapec bol odoslaný na ORL vyšetrenie stomatochirurgom, u ktorého je v sle-

dovaní po exstirpácii fibromatózneho tkaniva z mandibuly vpravo a maxily vľavo. Pri kontrolnom „cone beam“ CT vyšetrení čelustí bol ako vedľajší nález diagnostikovaný tumor v čuchových dutinách.

Pacient popisoval sťažené dýchanie cez nos vpravo, výtok vodnatého sekreту z nosa a intermitentné bolesti hlavy. V predchorobí nemal záznam o opakovaných zápaloch prinosových dutín. Rinoendoskopický nález bol diskretný. Bola zistená hyperplázia dolných nosových mušlí, stredný nosový priechod vpravo bol zúžený, bez patologickej sekrecie, polypov alebo tumoru. Ďalší ORL nález bol fyziologický.

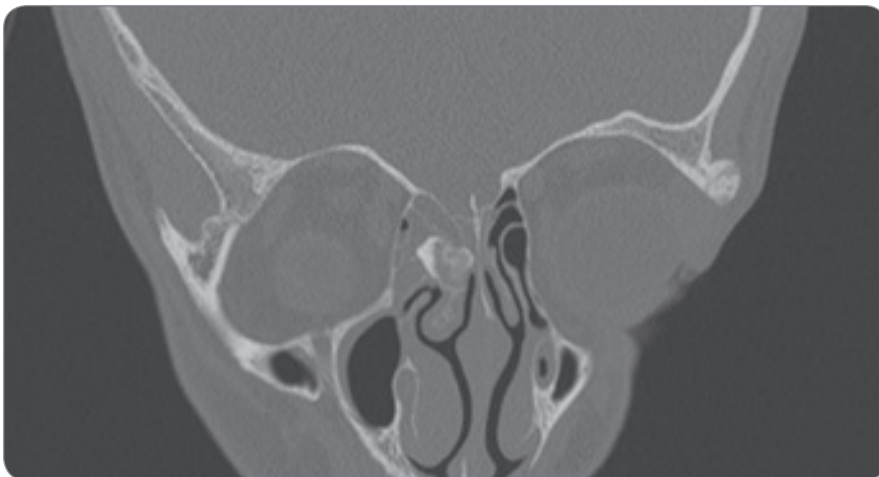
CT vyšetrenie prinosových dutín zobrazilo sklerotický tumor v strope etmoi-

dálneho komplexu tesne naliehajúci na lamina lateralis laminae cribriformis vpravo v dĺžke 8,5 mm, s rozmermi 13 × 10 mm. Etmoidálne dutinky boli kompletne vyplnené tekutým obsahom a osteomeatálny komplex vpravo mal pacient zúžený (obr. 1, 2). Ďalšie prinosové dutiny boli bez patologického obsahu. Ako vedľajší nález boli opísané aj viacpočetné sklerotické tumory neurokrania a splanchnokrania.

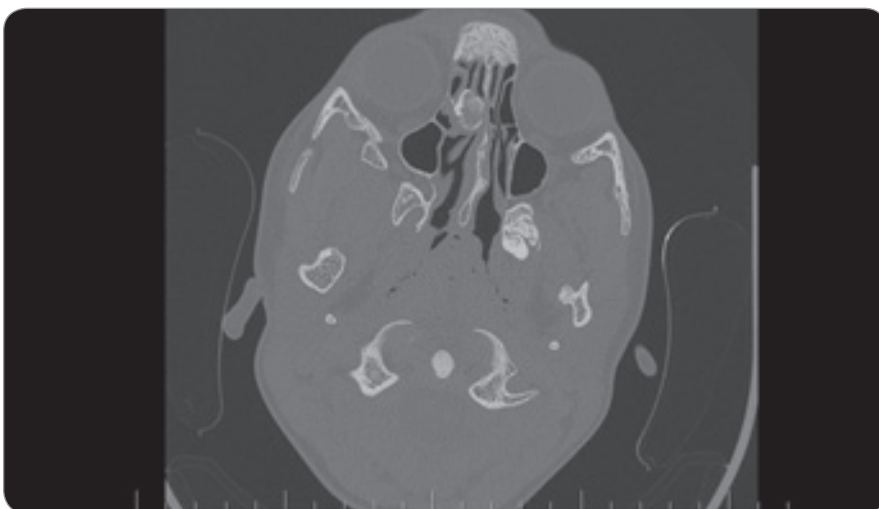
Vzhľadom na nejasnú dignitu nádoru a klinické ťažkosti chorého bola indikovaná chirurgická intervencia. Endoskopickým endonazálnym prístupom cez stredný nosový priechod bola vykonaná infundibulotómia, supraturbínálna antrostómia, predná etmoidektómia a otvorený frontálny recessus. V oblasti stropu predných etmoidálnych dutín vyrastal z lamina lateralis ossis cribriformis laločnatý tumor, tuhej konzistencie, s rozmermi 20 × 15 mm. Tumor bol exstirpovaný vcelku a odoslaný na biopsiu (obr. 3). Operačný výkon prebehol štandardne, perioperačne bez nálezu rinolikvoriei. Skoré pooperačné obdobie komplikované epistaxou vpravo, ktorá bola ošetrená prednou nosovou tampónádou. Po 24 hodinách bol pacient detampónovaný, bez recidívy krvácania. Na 2. pooperačný deň v stabilizovanom stave bol prepustený do ambulantnej starostlivosti. Pri ambulantnej kontrole na 11. pooperačný deň bol konštatovaný lokálny nález s primeraným hojením. Histopatologické vyšetrenie potvrdilo osteoidný osteóm. Pacient je naďalej dispenzarizovaný ORL lekárom a nemá žiadne klinické ťažkosti.

Diskusia

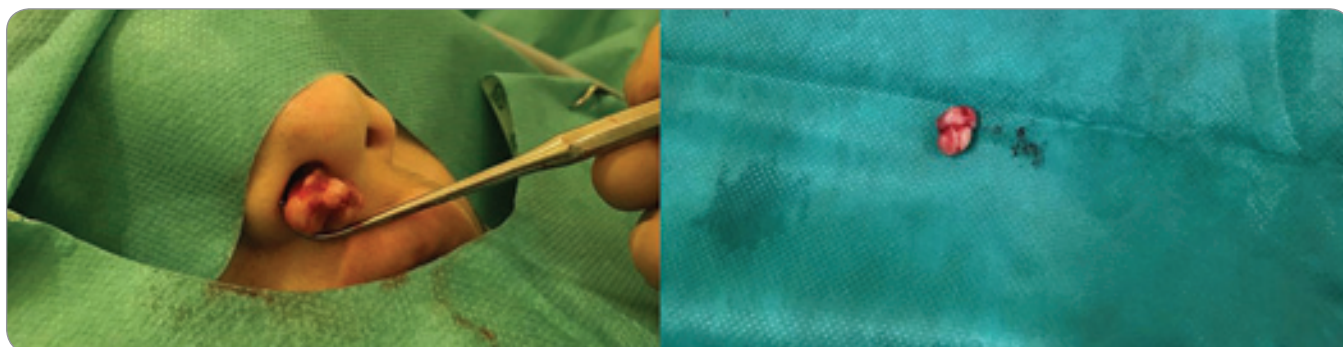
Osteómy sú benígne nádory tvorené z dobre diferencovaného kompaktného kostného tkaniva. Môžu mať viacero zložiek s rôznou hustotou [9]. V oblasti tvárového skeletu sa najčastejšie vyskytujú v uhle sánky, v oblasti prinosových dutín sa nachádzajú zriedkavo, je to 0,43 % v bežnej populácii [2,6]. V prinosových dutinách 96 % osteómov vzniká vo frontálnych dutinách, 2 % v etmoidálnych a maxilárnych dutinách. V sfenoidálnej dutine sa osteómy vyskytujú ojedinele. Tento typ tumoru môže vzniknúť v každom veku, hoci väčšina sa vysky-



Obr. 1. CT nález pred operáciou, koronárny rez (tumor nepresahuje hranice mediálnej ani laterálnej hranice etmoidov).



Obr. 2. CT nález pred operáciou, axiálny rez (stenčená lamina lateralis laminae cribriformis vpravo).



Obr. 3. Exstirpovaný tumor čuchového labyrintu vpravo.

tuje počas 4–6. dekády života. Častejšie sú u mužov ako u žien, a to v pomere 2 : 1 [3]. U detí sa vyskytujú raritne, v literatúre sú opisované len ojedinelé kazistiky [4,5]. Tieto nádory rastú pomaly, rýchlosť rastu je variabilná, priemerne 0,79–0,99 mm/rok. Malígna transformácia osteómu v literatúre nie je opísaná [5]. Etiológia nie je objasnená, existujú tri teórie: vývinová, traumatická a infekčná. Vývinová teória predpokladá, že sa aktivujú embryonálne kmeňové bunky a neskôr sa transformujú na bunky s nekontrolovanou tvorbou kosti. V traumatickej a infekčnej teórii sa zápalový proces považuje za podnecujúci faktor tvorby kostného nádoru [2,9]. Vzhľadom na vyššie uvedené vlastnosti tumoru, sa často jedná o náhodný nález pri zobrazovacom vyšetrení [2,3,9]. Symptomatické sú vtedy, keď obturujú ústie prinosovej dutiny, alebo rastom utláčajú štruktúry v blízkosti [2,3]. Najčastejším príznakom je bolesť hlavy, lokalizovaná nad oblasťou osteómu, veľký tumor môže spôsobiť deformitu tváre v danej oblasti. Medzi ďalšie možné príznaky patrí sťažené dýchanie cez nos a sinusitída [2,9,10]. Pokiaľ tumor progreduje, môže spôsobiť orbitálne komplikácie, prejavujúce sa diplopiou, epiforou, proptózou bulbu až slepotou. Zriedkavo sa môžu vyskytnúť aj intrakraniálne komplikácie, prvý príznak tumoru tak môže byť nález intrakraniálnej mukokély, úniku mozgomiešneho moku, mozgový absces, prípadne rozvoj meningitídy [2,3,11]. Histologicky sú podobné normálnej kosti a obsahujú rôzne množstvo vláknitého tkaniva. Mikroskopicky sú zložené z trabekúl dobre diferencovanej laminárnej kosti, ktoré sú oddelené fibrovaskulárnym väzivom [2,3].

Podľa štruktúry tkaniva a jeho hustoty sa delia na kortikálne osteómy s vyššou hustotou tkaniva a osteómy spongiózne s nižšou hustotou. Tretí typ je ich kombinácia [2,5,8]. Ak sa u pacienta vyskytne viac osteómov v oblasti tvárového skeletu je potrebné myslieť aj na vrodené geneticky podmienené ochorenie, tzv. Gardnerov syndróm. Jedná sa o autozomálne dominantnú mutáciu v géne APC (tumor supresorový gén). Ochorenie charakterizuje výskyt črevnej polypózy, mnohopočetných osteómov, kožných fibrómov, epidermálnych cyst a zubných abnormalít [3,7,8,12]. Pacienti, u ktorých je podozrenie na Gardnerov syndróm, by sa mali podrobiť kompletnému vyšetreniu vrátane endoskopie dolného gastrointestinálneho traktu a genetického vyšetrenia [7,8,12]. Zobrazovacia metóda voľby na diagnostiku osteómov je CT vyšetrenie v koronárnej a axiálnej projekcii PND. Umožňuje určiť presné anatomické umiestnenie nádoru a jeho veľkosť [9,10]. Osteóm sa v CT zobrazí ako homogénne, hyperdenzné a dobre ohraničené ložisko. Pri podozrení na intrakraniálne šírenie sa odporúča doplniť MR vyšetrenie, kde sa tumor zobrazí ako homogénny hypointenzívny signál v T1 obraze [13]. Osteómy prinosových dutín sa riešia chirurgicky alebo len sledujú. Chirurgická liečba je indikovaná ak tumor spôsobuje klinické ťažkosti, rýchlo rastie, presahuje hranicu dutiny alebo vznikajú komplikácie. Podľa mnohých autorov osteóm s rozmerom > 3 cm je potrebné operovať [2,10,11]. Chirurgický postup závisí od veľkosti, umiestnenia a šírenia nádoru. Ak je nádor malý a je možné ho extrahovať cez nosový vchod, je voľbou endoskopický endonazálny

prístup [1,4,7,9]. Ten je predovšetkým u detí náročnejší, kvôli úzkej nosovej dutine a vyžaduje skúseného operátora. Použitie CT neuronavigácie znižuje riziko poranenia dôležitých štruktúr v blízkosti tumoru [4–6,14]. Ak je nádor väčší a je v kontakte orbitou, alebo do nej zasahuje, je metódou voľby vonkajší prístup, ktorý závisí od lokalizácie nádoru (osteoplastický lalok človej alebo čelustnej dutiny, externá etmoidektómia, zriedkavo kraniofaciálna resekcia) [6,9,10]. Pri operácií je možné oba prístupy (externý, endoskopický) kombinovať [1,5,6,14]. Recidíva osteómov po resekcii je zriedkavá a opätovný rast je zvyčajne výsledkom nedostatočného odstránenia [4,14]. U pacientov s malým a asymptomatickým tumorom alebo u chorých, ktorí nesúhlasia s operačným výkonom, je možné pacienta sledovať v 6-mesačných intervaloch základným fyzikálnym vyšetrením [2,5,13].

Záver

Osteómy prinosových dutín sú pomaly rastúce benígne nádory. V detskej populácii sa vyskytujú raritne. Tieto nádory môžu byť asymptomatické a zvyčajne sa náhodne detegujú CT vyšetrením. Vzhľadom na anatomickú lokalitu a expanzívne správanie môžu však spôsobiť závažné komplikácie. Liečba osteómu je chirurgická a endoskopický prístup umožňuje bezpečné odstránenie nádoru a kozmetické výhody. I keď je recidíva choroby zriedkavá, odporúčame sledovať pacienta ORL špecialistom.

Literatúra

1. Strek P, Zagólski O, Składzień J et al. Osteomas of the paranasal sinuses: surgical treatment options. *Med Sci Monit* 2007; 13(5): CR244–250.

2. Lund VJ, Stammberger H, Nicolai P et al. European position paper on endoscopic management of tumours of the nose, paranasal sinuses and skull base. *Rhinol Suppl* 2010; 22: 1–143.
3. Zouloumis L, Lazaridis N, Papadaki M et al. Osteoma of the ethmoidal sinus: a rare case of recurrence. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2005; 43(6): 520–522. doi: 10.1016/j.bjoms.2005.01.014.
4. Alotaibi N, Hanss J, Benoudiba F et al. Endoscopic removal of large orbito-ethmoidal osteoma in pediatric patient: case report. *Int J Surg Case Rep* 2013; 4(12): 1067–1070. doi: 10.1016/j.ijscr.2013.07.035.
5. Badran KW, Suh JD, Namiri N et al. Pediatric benign paranasal sinus osteoneogenic tumors: a case series and systematic review of outcomes, techniques, and a multiportal approach. *Am J Rhinol Allergy* 2018; 32(6): 465–472. doi: 10.1177/1945892418793475.
6. Ishii T, Sakamoto Y, Miwa T et al. A giant osteoma of the ethmoid sinus. *J Craniofac Surg* 2018; 29(3): 661–662. doi: 10.1097/SCS.0000000000004206.
7. Pons Y, Blancal JP, Verillaud B et al. Ethmoid sinus osteoma: diagnosis and management. *Head Neck* 2013; 35(2): 201–204. doi: 10.1002/hed.22945.
8. Alexander AA, Patel AA, Odland R. Paranasal sinus osteomas and Gardner's syndrome. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2007; 116(9): 658–662. doi: 10.1177/000348940711600906.
9. Doležal P, Sičák M. Otorinolaryngológia a chirurgia hlavy a krku. Bratislava: Herba 2018: 239–241.
10. Bugová G, Jeseňák M, Uhliarová B et al. Úloha FESS v manažmente osteómov prínosových dutín. *Slov Lek* 2014; 24(38): 157–160.
11. Satyarthee GD, Suri A, Mahapatra AK. Giant sphenoidal osteoma in a 14-year boy presenting with visual impairment and facial deformity: short review. *J Pediatr Neurosci* 2015; 10(1): 48–50. doi: 10.4103/1817-1745.154340.
12. Payne M, Anderson JA, Cook J. Gardner's syndrome – a case report. *Br Dent J* 2002; 193(7): 383–384. doi: 10.1038/sj.bdj.4801571.
13. Shah J, Gandhi D, Chauhan A et al. Imaging review of pediatric benign osteocytic tumors and latest updates on management. *J Clin Med* 2021; 10(13): 2823. doi: 10.3390/jcm10132823.
14. Parikh SR, Cuellar H, Sadoughi B et al. Indications for image-guidance in pediatric sinonasal surgery. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2009; 73(3): 351–356. doi: 10.1016/j.ijporl.2008.10.010.