

Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Parotid Gland: A Rare Case Report

Maryam Ghasemi¹,
Laleh Vahedi Larijani²,
Mehdi Nikkhah³,
Somayeh Sheidaei²

¹ Associate Professor, Immunogenetics Research Center, Mazandaran University of Medical Sciences, Sari, Iran

² Assistant Professor, Department of Pathology, Faculty of Medicine, Mazandaran University of Medical Sciences, Sari, Iran

³ Assistant Professor, Department of Otorhinolaryngology, Faculty of Medicine, Mazandaran University of Medical Sciences, Sari, Iran

(Received May 21, 2018 ; Accepted November 27, 2019)

Abstract

Inflammatory Myofibroblastic Tumor (IMT) is an uncommon benign neoplasm with unknown etiology that rarely affect parotid gland. Clinical and pathologic diagnosis of this neoplasm is difficult and is occasionally misdiagnosed as malignant. This reports presents the case of a 42 year old woman with IMT in the right parotid gland. Using fine needle aspiration cytology, pleomorphic adenoma and mucoepidermoid carcinoma were suggested as differential diagnosis and right parotidectomy was performed. Histopathologic examination along with immunohistochemical analysis confirmed an IMT. During microscopic examination of parotid mass, especially in presence of myxoid background along with inflammatory cells infiltration, inflammatory myofibroblastic tumor should also be considered.

Keywords: inflammatory myofibroblastic tumor, parotid gland

J Mazandaran Univ Med Sci 2020; 29 (181): 156-161 (Persian).

* **Corresponding Author: Maryam Ghasemi** - Immunogenetics Research Center, Mazandaran University of Medical Sciences, Sari, Iran (E-mail: a.zghasemi@yahoo.com)

تومور میوفیبروبلاستیک التهابی غده پاراتید: گزارش یک مورد نادر

مریم قاسمی^۱لاله واحدی لاریجانی^۲مهدی نیکخواه^۳سمیه شیدایی^۲

چکیده

تومور میوفیبروبلاستیک التهابی (IMT)، یک نئوپلاسم خوش خیم با علت ناشناخته است که به ندرت در غده پاراتید یافت می شود. تشخیص این نئوپلاسم از لحاظ بالینی و پاتولوژیک مشکل بوده و گاهی با تومورهای بدخیم اشتباه می شود. در این گزارش، ما یک مورد از تومور میوفیبروبلاستیک التهابی در غده پاراتید خانم ۴۲ ساله معرفی می کنیم که در بالین و حتی سیتولوژی آسپیراسیون سوزنی با تشخیص آدنوم پلنومورف و جهت افتراق آن از نئوپلاسم بدخیم موکوپیدروئید کارسینوم، کاندیدای جراحی پاراتیدکتومی راست شده بود. در بررسی هیستولوژیک و با آنالیز ایمونوهیستوشیمی، تشخیص یک تومور میوفیبروبلاستیک التهابی مسجل شد. در نتیجه باید به هنگام بررسی میکروسکوپی توده های غده پاراتید در صورت مشاهده زمینه میگزوییدی به همراه ارتشاح سلول های التهابی، تومور میوفیبروبلاستیک التهابی (هرچند نادر است)، در نظر گرفته شود.

واژه های کلیدی: تومور میوفیبروبلاستیک التهابی، غده پاراتید

مقدمه

Atypical fibromyxoid tumor و Inflammatory pseudotumor نامگذاری شده است (۳). اتیولوژی این تومور همچنان ناشناخته و مورد اختلاف نظر است. برخی آن را یک شبه تومور در واکنش به عوامل عفونی مثل ویروس اپشتن بار یا بدنبال تروما دانسته اند و برخی آن را یک پاسخ نامناسب ایمونولوژیک معرفی کرده اند (۴-۷). در مقابل برخی مطالعات اختلالات سیتوژنتیک کلونال را در ایجاد این تومور دخیل دانسته اند (۲، ۱) و معتقدند که این تومور یک نئوپلاسم واقعی می باشد (۳-۸). تشخیص قبل از جراحی این تومور نه تنها از دیدگاه بالینی و رادیولوژیک بلکه در سیتولوژی و حتی پاتولوژی مشکل و بحث برانگیز بوده و گاهی بدخیمی ها را تقلید

تومور میوفیبروبلاستیک التهابی (Inflammatory Myofibroblastic Tumor: IMT)، یک نئوپلاسم خوش خیم ناشایع بوده که از ترکیب سلول های میوفیبروبلاست همراه با سلول های التهابی تشکیل می شود (۱، ۲، ۳). این تومور عمدتاً در نسج ریه بروز می کند اما سایر نواحی بدن از جمله مزاتر، کبد، کلیه و طحال را به طور شایع درگیر می کند (۳). این نئوپلاسم بندرت غدد بزاقی و عمدتاً پاراتید را درگیر می کند و موارد معدودی از آن در مطالعات گزارش شده است (۴). نظر به ترکیب هتروژن این تومور در نمای پاتولوژی، با عناوین متفاوتی از قبیل: Pseudosarcomatous myofibroblastic proliferation

E-mail: a.zghasemi@yahoo.com

مؤلف مسئول: مریم قاسمی - ساری: کیلومتر ۱۷ جاده خزرآباد، مجتمع دانشگاهی پیامبر اعظم، دانشکده پزشکی

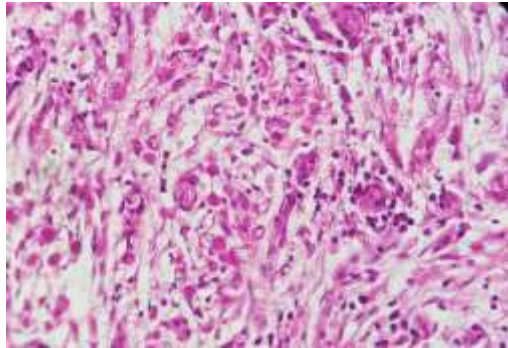
۱. دانشیار پاتولوژی، مرکز تحقیقات ایمونونئوپلیس، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مازندران، ساری ایران.

۲. استادیار پاتولوژی، دپارتمان پاتولوژی، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مازندران، ساری ایران.

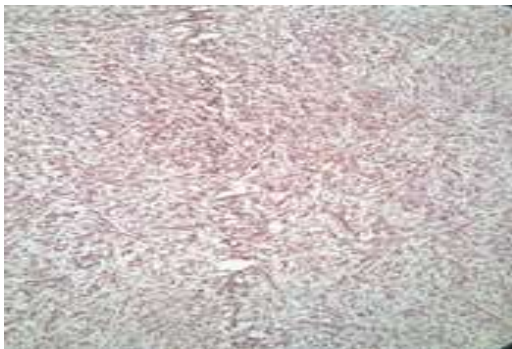
۳. استادیار گوش و حلق و بینی، بیمارستان بوعلی سینا ساری، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مازندران، ساری ایران

تاریخ دریافت: ۱۳۹۸/۲/۳۱ تاریخ ارجاع جهت اصلاحات: ۱۳۹۸/۳/۸ تاریخ تصویب: ۱۳۹۸/۹/۶

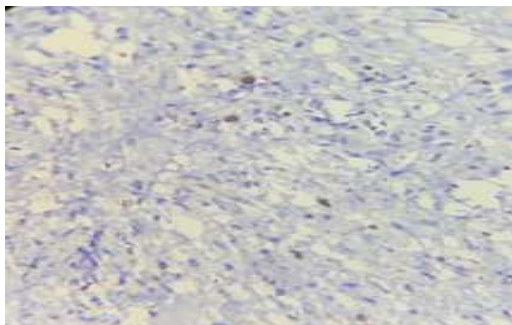
زده شد. این سلول‌های توموری با مارکرهای MNF 116، S100، CD34 واکنش نشان ندادند (تصویر شماره ۲).



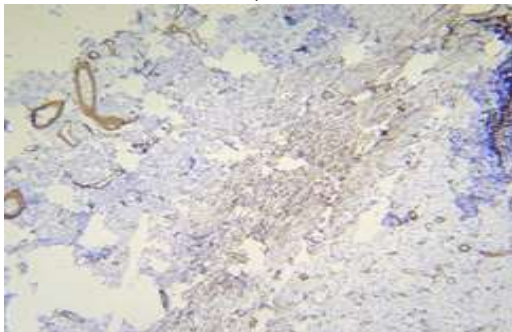
تصویر شماره ۱: فتومیکروگرافی از هیستوپاتولوژی IMT پاروتید بیمار: الف - مناطق میگزوتید و عروق فراوان ب - سلول‌های میوفیبروبلاست و التهابی. (رنگ آمیزی H&E بزرگنمایی ۴۰۰ برابر)



الف



ب



ج

می‌کند (۱۰،۹،۵،۳). در این مقاله یک مورد نادر از تومور میوفیبروبلاستیک التهابی غده پاروتید را معرفی می‌کنیم که در بالین و سیتولوژی آسپیراسیون سوزنی به اشتباه آدنوم پلئومورف و حتی مشکوک به بدخیمی موکوپیدرموئید کارسینوم تشخیص داده شد. جای آن دارد پاتولوژیست‌ها در تشخیص افتراقی توده‌های غده پاروتید به‌ویژه در صورت وجود ترکیبی از سلول‌های دوکی، هیستوسیت و لنفوپلاسماسل در یک استرومای میگزوتید این نتوپلاسم خوش خیم را در نظر بگیرند.

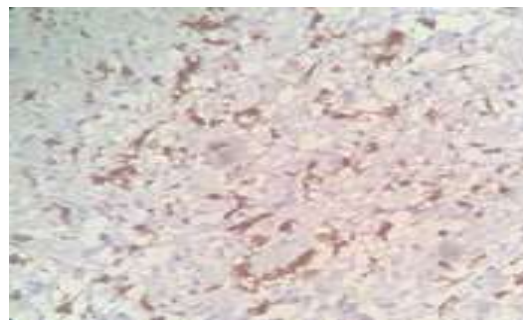
معرفی بیمار

یک خانم ۴۲ ساله به علت تورم موضعی مختصر دردناک و با یک رشد تدریجی طی ۳ سال در ناحیه پاروتید راست به درمانگاه گوش و حلق و بینی بیمارستان بوعلی سینا ساری مراجعه می‌کند. در معاینه، یک توده با قوام سخت و کمی تندردون علائم فلج اعصاب صورتی یافت شد. بیمار سابقه‌ای از تروما و رادیاسیون در محل ضایعه و بیماری اتوایمونی ذکر نمی‌کند. بیمار قبل از مراجعه به بیمارستان ما در یک مرکز دیگر تحت آسپیراسیون سوزنی قرار گرفته و با تشخیص احتمالی آدنوم پلئومورفیک و جهت رد موکوپیدرموئید کارسینوم توصیه به جراحی می‌شود. برای بیمار تحت بیهوشی عمومی عمل جراحی پاروتیدکتومی کامل راست با حفظ عصب صورتی انجام می‌شود. در برش بافت پاروتید، یک توده توپر سفید مایل به زرد با حاشیه مشخص و به اقطار ۲×۳ با سطح مقطع درخشان و صاف یافت شد. در بررسی میکروسکوپی یک تومور مزانشیمی ملتهب با طرح رشد لبولار تشکل از سلول‌های دوکی تا ستاره‌ای شکل پلئومورف همراه با ارتشاح فراوان نوتروفیل، لنفوپلاسماسل، ائوزینوفیل، هیستوسیت و عروق خونی متعدد در یک استرومای عمدتاً میگزوتید تا فیبروتیک (تصویر شماره ۱) با مارکر Vimentin و به صورت کانونی با اکتین عضله صاف (SMA) واکنش مثبت نشان داده و با KI67، میزان میتوز ۱ درصد تخمین

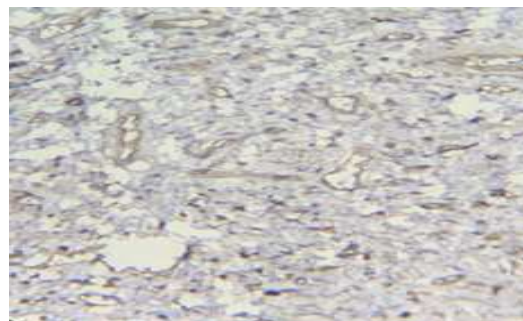
تشخیص IgG4-related sclerosis که از بیماری‌های نادر درگیرکننده پاروتیدی باشد را کنار گذاشت. با این یافته‌ها، تشخیص تومور میوفیبروبلاستیک التهابی (IMT) تأیید شد. از آنجایی که برداشت تومور به‌طور کامل انجام شده بود، بدون اقدام اضافی، پیگیری منظم بیمار توصیه شد.

بحث

IMT یک نئوپلاسم خوش خیم با علت ناشناخته است که بندرت غدد بزاقی و عمدتاً غده پاروتید را درگیر می‌کند. این نئوپلاسم علی‌رغم خوش خیم بودن تمایل به تهاجم موضعی دارد (۵،۳). این تومور در هر دو جنس با طیف سنی گسترده در تمام نواحی بدن گزارش شده است (۵)، اما موارد گزارش شده در پاروتید عمدتاً مردان را در دهه‌های ۶ و ۷ زندگی و بالاتر (۱۰،۶،۴،۲،۱) و زنان را در دهه ۵ زندگی (۵،۳) درگیر نموده است. در موارد معدودی گزارش شده است که این تومور به‌صورت یک تورم موضعی با رشد آهسته و با حاشیه مشخص و کمی تندر و دردناک به‌ویژه در پاروتید سمت راست بروز نموده و بیماران فاقد شکایت یا علامت دیگری بوده‌اند (۴،۳،۱). IMT از لحاظ بالینی و رادیولوژیک عمدتاً با پلئومورفیک آدنوما که شایع‌ترین نئوپلاسم اولیه خوش خیم غده پاروتید است اشتباه می‌شود، اما گاهی نیز با پروسه التهابی مثل سیال‌آدنیت عفونی (۳) و یا بدخیمی (۵) اشتباه گرفته می‌شود. تشخیص این تومور با سیتولوژی در اغلب موارد ناموفق بوده یا با آدنوم پلئومورف افتراق داده نمی‌شود (۱۰،۷،۵،۳). بیماری که ما در این گزارش معرفی نموده‌ایم خانم ۴۲ ساله‌ای است که با شکایت موضعی و مختصر دردناک با یک رشد تدریجی از سه سال قبل از مراجعه در ناحیه پاروتید راست در بیمارستان آموزشی درمانی بوعلی سینا ساری تحت رزکسیون قرار گرفت. بیمار فاقد هر گونه علامت یا شکایت دیگر بوده است. آن‌چه که معرفی این بیمار را حائز اهمیت نمود آن است که، این اولین مورد نادر از تومور میوفیبروبلاستیک التهابی غدد بزاقی می‌باشد که در



د



ه



و

تصویر شماره ۲: فتومیکروگرافی از آنالیز ایمنونوهیستوشیمی IMT پاروتید بیمار: الف- واکنش قوی و منتشر سلول‌ها با vimentin، ب- واکنش تنها در ۱ درصد سلول‌ها با Ki67، ج- واکنش کانونی سلول‌های توموری دوکی و دیواره عروق با SMA، د- عدم واکنش سلول‌های توموری در مقابل واکنش قابل توجه هیستوسیت‌ها با S100، ه- عدم واکنش سلول‌های توموری با CD34، و- عدم واکنش سلول‌های توموری با MNF116. (رنگ آمیزی IHC، تصاویر با بزرگنمایی ۴۰۰ برابر)

بافت غدد بزاقی مجاور تومور، فاقد تغییر پاتولوژیک بود. حضور سلول‌های ستاره‌ای شکل پلئومورف در یک استرومای عمدتاً میگزویید و طبیعی بودن نسج غده بزاقی اطراف تومور و فقدان علایم سیستمیک در بیمار، همچنین عدم مشاهده فلیت و اسکروز، فقدان لنفویید فولیکول و عدم تشکیل راسل بادی در پلاسماسل‌ها،

درمان این بیماران برداشت کامل تومور یا پاراتیدکتومی یکطرفه می‌باشد و پروگنوز عالی است. اما پیگیری طولانی مدت بیمار توصیه می‌شود زیرا خطر عود تومور در ریه تا ۲ درصد و در نواحی خارج ریه تا ۲۵ درصد گزارش شده است (۳). برای بیمار گزارش ما نیز پاروتیدکتومی راست انجام شده بود و تنها پیگیری منظم درازمدت توصیه گردید. در نتیجه IMT یک نئوپلاسم خوش خیم بوده که هرچند نادر، می‌تواند پاروتید را درگیر نماید و گاهی با بدخیمی اشتباه شود. در بررسی پاتولوژیک از توده لوکالیزه پاروتید، در صورت وجود سلولهای دوکی ستاره‌ای شکل بعضاً پلئومورف همراه با لنفوپلاسموسل و ائوزینوفیل فراوان و عروق زیاد در یک زمینه میگزوتید با شک به IMT و رد سارکوم فیبروبلاستی باید آنالیز ایمنوهِیستوشیمی صورت پذیرد تا تشخیص قطعی شود. اگرچه در ۴۵ تا ۵۰ درصد موارد این تومورها نوآرایی کلونال در ژن ALK در جایگاه 2p23 یافت می‌شود (۱۱)، اما به دلیل عدم دسترسی به FISH study در مورد بیمار معرفی شده، این بررسی انجام نشد.

دانشگاه علوم پزشکی مازندران گزارش شده است. دلیل دیگر آن که تشخیص آن در بالین، رادیولوژی و سیتولوژی و حتی در پاتولوژی با رنگ آمیزی روتین هماتوکسیلین ائوزین مشکل ساز و مورد اختلاف نظر بوده است. در بررسی پاتولوژیک اولیه از تمام تومور، یک نئوپلاسم مزانشیمی ملتهب با درجاتی از آتیبی سلول با تشخیص Atypical Fibromyxoid Tumor (IMT) جهت افتراق از Low Grade Fibromyxoid Sarcoma و Atypical monophasic mixed tumor رنگ آمیزی ایمنوهِیستوشیمی انجام شد و ماهیت میوفیبروبلاستیک سلولهای توموری همانند نتایج حاصل از آنالیزهای ایمنوهِیستوشیمیایی قبلی (۸،۳،۲،۱) تأیید گردید و با توجه به حضور سلولهای التهابی، زمینه میگزوتید، حضور میوفیبروبلاست و فعالیت میتوزی اندک، تشخیص IMT که با سایر اسامی هیستوپاتولوژیک از قبیل Inflammatory Myofibroblastic pseudosarcomatous Inflammatory Pseudotumor و Atypical Fibromyxoid tumor نیز نامیده می‌شود، مسجل شد.

References

1. Van Weert S, Manni JJ, Driessen A. Inflammatory myofibroblastic tumor of the parotid gland: case report and review of the literature. *Acta Otolaryngol* 2005; 125(4): 433-437.
2. Coffin CM, Watterson J, Priest JR, Dehner LP. Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). A clinicopathologic and immunohistochemical study of 84 cases. *Am J Surg Pathol* 1995; 19(8): 859-872.
3. Kilic E, Ibrahimov M, Aslan M, Yener HM, Karaman E. Inflammatory myofibroblastic tumor of the parotid gland. *J Craniofac Surg* 2012; 23(6): e557-558.
4. Caranti A, Cimatti A. Inflammatory pseudotumor of the parotid gland: a case report. *Frontiera ORL* 2016; 7(2).
5. Barrios-Sánchez GM, Dean-Ferrer A, Alamillos-Granados FJ, Ruiz-Masera JJ, Zafra-Camacho FM, García de Marcos JA, et al. Inflammatory pseudotumor of the parotid gland *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2005; 10(4): 371-375.
6. Williams SB, Foss RD, Ellis GL. Inflammatory pseudotumors of the major salivary glands. Clinicopathologic and immunohistochemical analysis of six cases. *Am J Surg Pathol* 1992; 16(9): 896-902.
7. Thirumaran NS, Tripathy SM. Inflammatory pseudotumor of parotid gland—a case report. *Journal of Evolution of Medical and Dental Sciences* 2013; 2(42): 8115-8118.

8. Coffin CM, Watterson J, Priest JR, Sidransky D. Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). A clinicopathologic and immunohistochemical study of 84 cases. *Am J Surg Pathol* 1995; 19(8): 859-872.
9. Escobar Sanz-Dranguet P, MárquezDorsch FJ, SanabriaBrassart J, Gutiérrez Fonseca R, VillacampaAubá JM, Pastormerlo G, et al. Inflammatory pseudotumor of paranasal sinuses. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2002; 53(2): 135-138.
10. Rahimi S, Mafera B, Vigili MG. Inflammatory pseudotumor of the parotid gland: report of a case with fine needle aspiration cytology. *Acta Cytol* 2004; 48(4): 574-576.
11. Goldblum JR, Mckenney JK, Lamps L, Jeffrey L. Myers. Rosai and Ackermans Surgical pathology. 11th ed. Philadelphia: Elsevier; 2019.