

Lingual Osseous Choristoma

Lingual Osseöz Koristom

Case Report Olgu Sunumu

Şükrü Turan¹, Mehmet Özgür Pınarbaşı¹, Mustafa Açıkalin², Ercan Kaya¹, Erkan Özudoğru¹

¹Eskişehir Osmangazi Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı, Eskişehir, Türkiye

²Eskişehir Osmangazi Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, Eskişehir, Türkiye

Abstract

An osseous choristoma is a rare benign lesion consisting of normal bone tissue; it is seen in abnormal locations. It is most often seen in the back 1/3 of the tongue in the head. Its etiopatogenesis is controversial, and till date, less than 100 cases have been reported in the literature. Although a lingual osseous choristoma is asymptomatic, in some patients, symptoms such as swelling sensation in the throat, globus pha-

ryngeus, dysphagia, retching, nausea, and sore throat have been reported. In this article, 41-years old female patient admitted to our clinic with throat pain and globus pharyngeus who underwent an excision from the region of radiks lingua and the result of pathological examination was reported as "osseous choristoma" presented and literature is reviewed.

Keywords: Choristoma, osteoma, tongue, surgery

Öz

Osseöz koristom normal kemik dokusundan oluşan ancak anormal lokalizasyonda görülen benign karakterli, nadir görülen bir lezyondur. Baş boyun bölgesinde en sık dil arka 1/3 lük kısmında görülür. Etyopatogenezi tartışmalı olup günümüze kadar literatürde 100'den az olgu bildirilmiştir. Lingual osseöz koristom asemptomatik olmakla birlikte, bazı hastalarda boğazda şişlik hissi, takılma hissi, disfaji, öğürme,

bulantı ve boğaz ağrısı gibi semptomlar bildirilmiştir. Bu yazımızda, boğazında ağrı ve takılma hissi ile kliniğimize başvuran, radiks lingua bölgesinden kitle eksizyonu yapılan ve patolojik inceleme sonucu "osseöz koristom" olarak raporlanan 41 yaşındaki kadın hasta sunulmuş ve literatür gözden geçirilmiştir.

Anahtar Kelimeler: Koristom, osteom, dil, cerrahi



This study was presented as a poster at the 37th Turkish National Otolaryngology and Head and Neck Surgery Congress on 28 October - 1 November 2015, Antalya, Turkey.

Bu çalışma, 37. Türk Ulusal Kulak Burun Boğaz ve Baş Boyun Cerrahisi Kongresi'nde poster bildirisi olarak sunulmuştur, 28 Ekim - 1 Kasım 2015, Antalya, Türkiye.

Address for Correspondence/Yazışma Adresi: Mehmet Özgür Pınarbaşı
E-mail: ozgurpinarbasli@gmail.com

Received Date/Geliş Tarihi: 30.12.2015
Accepted Date/Kabul Tarihi: 21.03.2016

© Copyright 2016 by Official Journal of the Turkish Society of Otorhinolaryngology and Head and Neck Surgery Available online at www.turkarchotorhinolaryngol.org

© Telif Hakkı 2016 Türk Kulak Burun Boğaz ve Baş Boyun Cerrahisi Derneği Makale metnine www.turkarchotorhinolaryngol.org web sayfasından ulaşılabilir.

DOI: 10.5152/tao.2016.1448

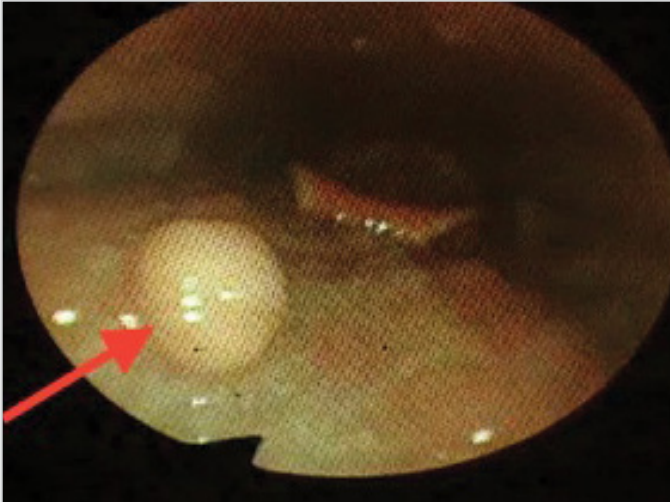
Giriş

Osseöz koristom nadir görülen, histolojik olarak normal matür kemik dokusundan oluşan ancak kemik dokusunun normalde bulunmadığı bir anatomik bölgede gelişen benign bir lezyondur (1). İlk tanımlandığı dönemden günümüze kadar 100'ün altında lingual osseöz koristom olgusu yayınlanmış olup, bu çalışmada boğazında ağrı ve takılma hissi ile kliniğimize başvuran, dilin 1/3 arka kısmından kitle eksizyonu yapılan ve histopatolojik inceleme sonucu "osseöz koristom" olarak raporlanan 41 yaşındaki kadın hasta sunulmuş ve literatür gözden geçirilmiştir.

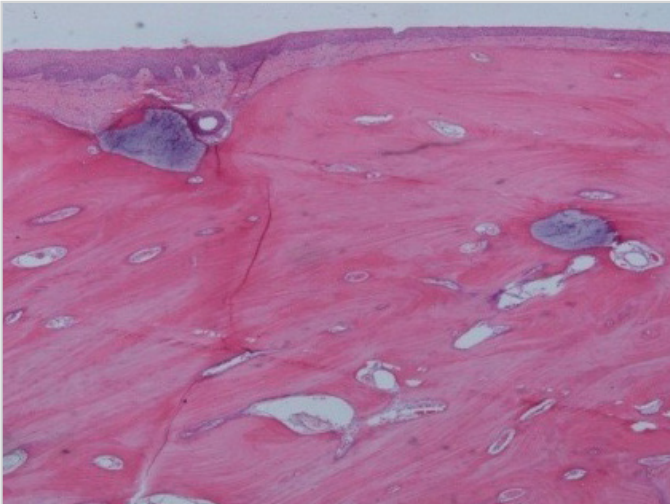
Olgu Sunumu

Kırk bir yaşında kadın hasta kliniğimize yaklaşık 6 aydır süregelen boğazında takılma ve şişlik hissi

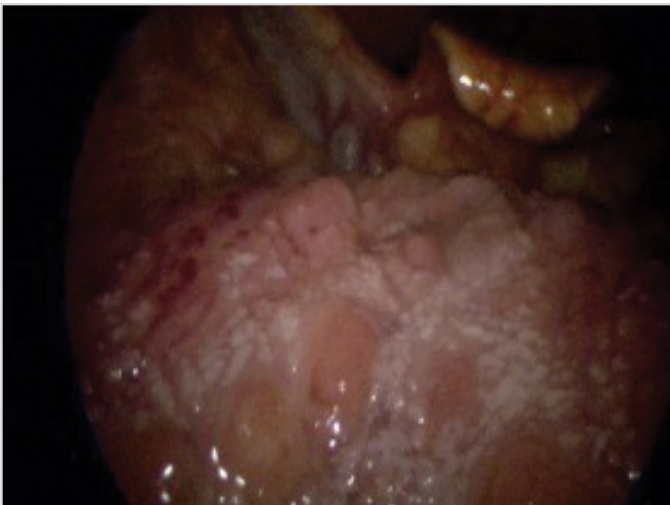
şikayetleri ile başvurdu. Yapılan kulak burun boğaz muayenesinde; dilin arka 1/3 lük kısmında, foramen caecum linguae'nın ön kısmında, sirkumvallat papilla hizasında, orta hattın sağında, beyaz renkli, yaklaşık 1x0.5 cm büyüklüğünde kitle ile karşılaşıldı (Resim 1). Klinik ön tanı olarak lingual tiroid, mukosel ve lingual tiroglossal duktus kisti düşünüldü. Boyun ultrasonografik incelemesinde tiroid dokusunun normal boyutta ve lokalizasyonda olduğu, tiroid fonksiyon testlerinin normal olduğu görüldü. Hastaya iki haftalık antibiyotik ve antiinflamatuvar tedavisi uygulandı ve kontrol muayenesinde kitlede gerileme olmadığı görüldü. Hastaya operasyon önerildi. Operasyon öncesinde hastadan aydınlatılmış onam belgesi alındı. Hastaya genel anestezi altında direkt laringoskopi yoluyla, dilin 1/3 lük arka kıs-



Resim 1. Dilin arka 1/3 lük kısmındaki kitlenin endoskopik görüntüsü



Resim 2. Mukozada epitel altında başlayan nodüler görünümde matür kemik dokusu (H&E×40)



Resim 3. Hastanın postoperatif 4. aydaki endoskopik görüntüsü

mındaki normal mukoza ile kaplı, sert ve beyaz renkli kitle total olarak eksize edildi. Mikroskopik incelemede stromada, epitel altından başlayarak geniş bir saha halinde matür kemik dokusu iz-

lendi. Kemik dokusu komşuluğunda minimal kronik inflamatuvar hücre infiltrasyonu saptandı (Resim 2). Hastanın histopatolojik inceleme sonucu “osseöz koristom” olarak raporlandı. Hastanın postoperatif birinci hafta ve dördüncü ayındaki kontrol endoskopik muayenesinde nükse rastlanmadı (Resim 3).

Tartışma

Lingual osseöz koristom nadir görülen, matür kemik dokusundan oluşan, yavaş büyüyen, iyi sınırlı, benign bir lezyondur. İlk defa *Monserat* tarafından 1913 yılında dil dorsumundan eksize edilen lezyondan tanımlanmış ve yazar tarafından lingual osteom terimi kullanılmıştır (1). Krolls ve ark. (2) ise 1971 yılında dokuz olguluk serilerinde osseöz koristom tanımını kullanmışlar ve osseöz koristomun normal kemik dokusunun, anormal lokalizasyonda yerleşerek oluştuğunu belirtmişlerdir. Lingual osseöz koristom 5-73 yaş aralığında, çoğunlukla 2-4. dekada görülmektedir ve olguların yaş ortalaması 28.7'dir (3-6). Lingual osseöz koristom kadınlarda, erkeklere oranla 2.7-4 kat daha sık görülmektedir (3, 5-7). Literatürle uyumlu olarak sunduğumuz olgu, kadın ve 41 yaşında idi.

Osseöz koristom, oral kavitede en çok dilde lokalizedir. Oral kavitede dil dışında bukkal mukoza ve alveolar mukozada da tanımlanmıştır (4). Lingual osseöz koristom çoğunlukla (%71) dilin arka 1/3 kısmında foramen caecum ve sirkumvallat papilla yanlarına ve daha az sıklıkla sırasıyla %17 ve %6 olmak üzere dilin lateral kenarı ve dilin orta 1/3 kısmına yerleşir (3, 4). Liu ve Tan (7) 1931 yılında, foramen caecum'un her iki tarafında bulunan bilateral osseöz koristom olgusunu yayınlamıştır. Bu olgu dışında literatürde yayınlanan diğer osseöz koristom olguları tek taraflıdır. Lingual osseöz koristom dilin dorsumunda yerleşir (1, 8). Sunduğumuz olgu literatürle uyumlu olarak tek taraflı, dil dorsum arka 1/3 kısmında yerleşimliydi.

Lingual osseöz koristom çoğunlukla asemptomatik olmakla birlikte, semptomatik olgularda boğazda şişlik ve yabancı cisim hissi, yutkunurken takılma hissi, disfaji, öğürme, bulantı ve boğaz ağrısı gibi semptomlar bildirilmiştir (3, 9). Yamamoto ve ark. (10) şiddetli kusma refleksi şikayeti olan olgu bildirmişlerdir. Maqbool ve ark. (11) hava yolu obstrüksiyonuna bağlı solunum sıkıntısı şikayeti olan olgu bildirmişlerdir. Sunduğumuz olguda boğazda takılma ve şişlik hissi şikayetleri mevcuttu. Bazı yazarlar semptomların lezyon çapı ve lokalizasyonu ile ilişkili olduğunu öne sürmüşlerdir (3, 5). Supiyaphun ve ark. (6) ise osseöz koristom boyutu ile semptomların ilişkili olmadığını bildirmişlerdir. Literatürde semptom vermiş küçük çaplı olguların yanı sıra, asemptomatik büyük çaplı olguların da yayınlanmış olmasının, bu düşüncüyü desteklediğini düşünmekteyiz. Bizim olgumuzda da kitle küçük çaplı olmasına rağmen semptom vermekteydi.

Lingual osseöz koristomlar saplı veya sapsız kitle şeklinde ortaya çıkarlar. Saplı formu daha sık görülmektedir. Sıklıkla üzeri normal mukoza ile kaplıdır. Literatürde üzeri ülser, papillomatöz formları da belirtilmiştir (2). Sunduğumuz olgunun üzeri normal mukoza ile örtülüydü ve sapsız formdaydı. Lingual osseöz koristom olgularının çapları 3 mm'den 50 mm'ye kadar tariflenmiştir. Maqbool ve ark. (11) hava yolu obstrüksiyonuna bağlı so-

lunum sıkıntısı şikayeti olan olguda, 50×40 mm çapında lezyon eksize ederek bugüne kadarki en büyük çaplı olguyu bildirmişlerdir. Sunduğumuz olgunun boyutları 1×0.5 cm'di.

Lingual osseöz koristom patogenezi halen tartışmalı olmakla birlikte iki teori üzerinde durulmaktadır. Bunlar gelişimsel teori ve posttravmatik (reaktif) teoridir (1, 3, 12). Histolojik olarak osseöz koristomlar benign ve normal görünümde kemik dokunun submukozal yerleşiminden oluşur. Kemik doku, fibrovasküler bağ dokusu içinde genellikle gerçek bir enkapsülasyon olmaksızın gözlenir. Olgun lameller kemik ile beraber iyi gelişmiş Haversian sistemi ve kemik iliği boşluğu mukoza ile çevrilidir, fakat gerçek osteoblastik ve osteoklastik aktivite gözlenmez (1,8).

Lingual osseöz koristomun çok nadir görülmesi, çoğu olgunun asemptomatik olması ve lokalizasyonu nedeniyle ilk muayene tanı zordur. Ayrıntılı fizik muayenede bile dilin arka 1/3 kısmında yer alması nedeni kolaylıkla gözden kaçabilir. Bazı olgular farklı şikayetlerle yapılan incelemeler sonucunda rastlantısal olarak tanı almaktadır. Foramen caecum çevresindeki lezyonlarda en önemli ayırıcı tanı ektopik tiroid bezidir. Ayrım için boyun ultrasonografisi ve tiroid fonksiyon testleri kullanılabilir. Olgumuzda ön tanı olarak ektopik tiroid dokusu düşünülerek boyun USG ve tiroid fonksiyon testleri yapıldı. Bu incelemelerin sonuçları bizi bu tanıdan uzaklaştırdı. Lingual osseöz koristomun radyolojik tanısında bilgisayarlı boyun tomografisi yardımcıdır (8).

Lingual osseöz koristomun tedavisi basit cerrahi eksizyondur. Lingual osseöz koristomda literatürde nüks ve malign transformasyon bildirilmemiştir. Olgumuzun postoperatif 1. hafta ve 4. ayındaki kontrol endoskopik muayenesinde nükse rastlanmamıştır.

Sonuç

Lingual osseöz koristom, benign kliniğe sahip nadir görülen bir lezyondur. Dil kökü kitleleri ile başvuran hastalarda ayırıcı tanıda akılda tutulmalıdır.

Informed Consent: Written informed consent was obtained from patient who participated in this study.

Peer-review: Externally peer-reviewed.

Author Contributions: Concept - Ş.T.; Design - Ş.T.; Supervision - E.Ö.; Analysis and/or Interpretation - E.K., M.Ö.P.; Literature Search - Ş.T., E.K.; Writing Manuscript - Ş.T., M.Ö.P.; Critical Review - E.Ö., M.Ö.P.; Other - Histopathologic Examination - M.A.

Conflict of Interest: No conflict of interest was declared by the authors.

Financial Disclosure: The authors declared that this study has received no financial support.

Hasta Onamı: Yazılı hasta onamı bu çalışmaya katılan hastadan alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Dış bağımsız.

Yazar Katkıları: Fikir - Ş.T.; Tasarım - Ş.T.; Denetleme - E.Ö.; Analiz ve/veya Yorum - E.K., M.Ö.P.; Literatür Taraması - Ş.T., E.K.; Yazıyı Yazan - Ş.T., M.Ö.P.; Eleştirel İnceleme - E.Ö., M.Ö.P.; Diğer - Histopatolojik inceleme - M.A.

Çıkar Çatışması: Yazarlar çıkar çatışması bildirmemişlerdir.

Finansal Destek: Yazarlar bu çalışma için finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

Kaynaklar

1. Benamerand MH, Elmangoush AM. Lingual osseous choristoma case report and review of literature. Libyan J Medicine 2007; 2: 46-8. [\[CrossRef\]](#)
2. Krolls SO, Jacoway JR, Alexander WN. Osseous choristomas (osteomas) of intra oral soft tissues. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1971; 32: 588-95. [\[CrossRef\]](#)
3. Gorini E, Mullace M, Migliorini L, Mevio E. Osseous choristoma of the tongue: A review of etiopathogenesis. Case Rep Otolaryngol 2014; 2014: 373104. [\[CrossRef\]](#)
4. Andressakis DD, Pavlakakis AG, Chrysomali E, Rapidis AD. Infected lingual osseous choristoma. Report of a case and review of the literature. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2008; 13: 627-32.
5. Chou L, Hansen LS, Daniels TE. Choristomas of the oral cavity: a review. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1991; 72: 584-93. [\[CrossRef\]](#)
6. Supiyaphun P, Sampatanakul P, Kerekhanjanarong V, Chawakit-hareon P, Sastarasadhith V. Lingual osseous choristoma: a study of eight cases and review of the literature. Ear Nose Throat J 1998; 77: 316-25.
7. Liu JY, Tan KKH. Lingual osteoma: case report and literature review. Singapore Med J 2011; 52: 198.
8. Khanna R, Khanna R. Osseous choristoma of the oral cavity: A rare entity review. Int J Dent Med Spec 2014; 1: 25-7.
9. McClendon EH. Lingual osseous choristoma. Report of two cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1975; 39: 39-44. [\[CrossRef\]](#)
10. Yamamoto M, Migita M, Ogane S, Narita M, Yamamoto N, Takaki T, et al. Osseous choristoma in child with strong vomiting reflex. Bull Tokyo Dent Coll 2014; 55: 207-15. [\[CrossRef\]](#)
11. Maqbool M, Ahmad R, Ahmad R. Osteoma of the tongue: a rare cause of upper airway obstruction. Indian Pediatr 1992; 29: 1429-31.
12. Shimono M, Tsuji T, Iguchi Y, Yamamura T, Ogasawara M, Honda T, et al. Lingual osseous choristoma. Report of 2 cases. Int J Oral Surg 1984; 13: 355-9. [\[CrossRef\]](#)