

Objawy szpiczaka w jamie ustnej – opis dwóch przypadków i przegląd piśmiennictwa

Symptoms of oral myeloma – two case reports and literature review

Iwona Niedzielska¹, Jacek Pająk², Jan Drugacz¹, Marcin Mrówka¹, Daria Wziątek-Kuczmik¹, Magdalena Jędrusik-Pawłowska¹

¹Katedra i Klinika Chirurgii Szczękowo-Twarzowej, Śląska Akademia Medyczna, Katowice (Department of Maxillofacial Surgery, Silesian Medical University, Katowice, Poland)

²Katedra i Zakład Patomorfologii, Śląska Akademia Medyczna, Katowice (Department of Pathomorphology, Silesian Medical University, Katowice, Poland)

Streszczenie

Szpiczak mnogi jest złośliwym nowotworem szpiku kostnego. Charakteryzuje się występowaniem triady objawów: zwiększoną skłonnością do krwawienia, ubytkami osteolitycznymi oraz obecnością białka Bence-Jonesa w moczu. Rozpoznanie jest trudne, zalecana jest terapia skojarzona.

Opisano dwa przypadki szpiczaka rozpoznane w Katedrze i Klinice Chirurgii Szczękowo-Twarzowej w Katowicach, zlokalizowane w przednim odcinku szczęki i w trzonie żuchwy u pacjentów powyżej 60 roku życia. Powodem zgłoszenia się pacjentów do lekarza była w pierwszym przypadku deformacja przedniego odcinka szczęki z naciekiem zapalnym, w drugim dolegliwości bólowe związane z patologicznym złamaniem żuchwy.

Słowa kluczowe: szpiczak mnogi, szpiczak odosobniony, żuchwa, szczęka, złamanie patologiczne

Abstract

Multiple myeloma is a malignant tumour that generally develops in the bone marrow. The diagnostic triad for multiple myeloma is increased tendency for bruising and bleeding, osteolysis (lytic bone lesions), and Bence-Jones proteinuria. Diagnosis remains difficult, and a combination of therapies are recommended. Two cases of myeloma diagnosed in the Department of Maxillofacial Surgery in Katowice are presented. One patient was seen for an anterior maxillary deformity with an inflammatory infiltrate (aged > 60 years; lesion location: anterior maxilla); the other presented pain related to a pathological mandible fracture (aged > 60 years; lesion location: body of the mandible).

Key words: multiple myeloma, solitary plasmacytoma, mandible, maxilla, pathological fracture

Wstęp

Szpiczak mnogi (MM, *multiple myeloma*) jest progresywną chorobą nowotworową charakteryzującą się występowaniem nacieków z plazmacytów szpiku oraz nadprodukcją immunoglobulin monoklonalnych (IgG, IgA, IgD lub IgE) lub białka Bence-Jonesa. Częstość występowania szpiczaka szacuje się na 2–3 przypadki na 100 000 osób, chorują głównie osoby po 40 roku życia, nie stwierdza się zależności między płcią a zachorowalnością. Najczęściej ten nowotwór ten występuje w postaci uogólnionej jako szpi-

Introduction

Multiple myeloma (MM) is a progressive neoplastic disease characterized by excessive numbers of abnormal plasma cells in the bone marrow and overproduction of monoclonal immunoglobulin (IgG, IgA, IgD or IgE) or Bence-Jones proteinuria. The estimated incidence of multiple myeloma is 2–3 cases per 100 000 persons per year. Most patients diagnosed with MM are > 40 years; there appears to be no sex predilection. The tumour most often develops in the form of multiple myeloma; less fre-

czak mnogi. Rzadziej jest spotykany w postaci pojedynczego guza (*plasmacytoma solitaria*) zlokalizowanego w kości lub w tkankach miękkich [1–3]. Pojedynczy, odosobniony szpiczak może reprezentować wczesną postać szpiczaka mnogiego [3, 4]. Najczęściej zajętymi kośćmi są miednica, kręgosłup, żebra i czaszka. W żuchwie szpiczak występuje tylko w 4,4% przypadków [3]. Uporczywe bóle kostne niejasnego pochodzenia, niewydolność nerek, nawracające zakażenia bakteryjne oraz skłonność do krwawień należą do najczęstszych objawów tej choroby. Często występuje również patologiczne złamanie kości i kręgow. Rozpoznanie ustala się na podstawie badań krwi, moczu, rozmazu szpiku, badań radiologicznych, w tym tomografii komputerowej (*computed tomography*) i magnetycznego rezonansu jądrowego (NMR, *nuclear magnetic resonance*) całego układu kostnego. Decydujące znaczenie ma jednak badanie histopatologiczne, często poszerzone o techniki specjalne, w tym immunohistochemiczne. Szpiczak pojedynczy jest nowotworem promienioczułym [2]. Można go również leczyć chirurgicznie z następczą radioterapią [4–7]. Podstawową metodą leczenia szpiczaka mnogiego jest chemioterapia, a w leczeniu podtrzymującym stosowanie interferonu.

W okresie ostatnich dziesięciu lat w Katedrze i Klinice Chirurgii Szczękowo-Twarzowej Śląskiej Akademii Medycznej w Katowicach leczono trzech pacjentów z objawami szpiczaka w jamie ustnej. Poniżej przedstawione są dwa przypadki.

Przypadek 1

Pacjentka H.Ł., lat 82 (nr historii choroby 457/95), w czerwcu 1995 roku została przyjęta do kliniki z powodu patologicznego złamania żuchwy w okolicy lewego kąta. Od wielu lat leczyła się z powodu osteoporozy, niemiarowości akcji serca oraz zaćmy. Przeżyła radykalną operację ginekologiczną oraz wycięcie guza okolicy podoczodołowej lewej (brak dokumentacji medycznej na ten temat). W dniu przyjęcia na oddział stwierdzono u niej asymetrię twarzy spowodowaną uwypukleniem okolicy podoczodołowej lewej. Na skórze tej okolicy stwierdzono 13-centymetrową bliznę po operacji guza, przebiegającą od okolicy skroniowej do podoczodołowej. W okolicy kąta żuchwy widoczny był obrzęk. Na dostarczonym rentgenogramie pantomograficznym stwierdzono ubytek osteolityczny w okolicy kąta żuchwy po stronie lewej z przerwaniem ciągłości kości (ryc. 1).

W lipcu 1995 roku w znieczuleniu miejscowym wyluszczone guz bez torebki wielkości 2 × 2 × 2 cm z marginesem kostnym. Tkanki miękkie skoagulowano, a jamę kostną wypełniono setonem gazowym. Wykonany po zabiegu rentgenogram pantomograficzny wykazał złamanie patologiczne z przemieszczeniem odłamów kostnych w operowanym miejscu oraz pęknięcie w okolicy prawego trzonu żuchwy (ryc. 2). Usunięty guz przesłano do badania histopatologicznego. W kilkunastu fragmentach guza wielkości od 0,3 do 0,7 cm uzyskanymi razem z drobnymi kawałkami tkanki kostnej stwierdzono gęste nacieki z komórek plazmatycznych o obfitej zasadochłonnej cytoplazmie. Większość plazmacytów o wysokim stopniu dojrzałości miała typowe

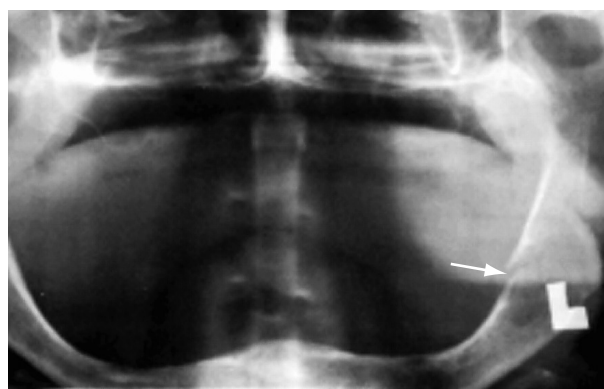
quantly as a solitary plasmacytoma located in the bone marrow or soft tissues of the body [1–3], which may represent an early indolent form of multiple myeloma [3, 4]. Multiple myeloma most frequently affects bones such as the pelvis, spine, ribs and skull. The mandible is involved in only 4.4% of all cases [3]. Persistent bone pain of undetermined origin, renal failure, recurrent bacterial infections, and an increased bleeding tendency are common clinical manifestations of the disease. Pathologic fractures of bones and spine are not uncommon. A diagnosis is made based on blood and urine tests, a bone marrow biopsy, and diagnostic imaging of the bones, including CT and NMR. This is confirmed by histopathology using specialized techniques as well as immunohistochemistry. Solitary plasmacytoma is a radiosensitive tumour [2], which can also be surgically managed with subsequent radiotherapy [4–7]. In the case of a multiple myeloma, chemotherapy is the treatment of choice with interferon as the maintenance treatment.

During the last 10 years three patients with oral myeloma symptoms have been treated in the Department of Maxillofacial Surgery in Katowice. Two cases are presented below.

Case 1

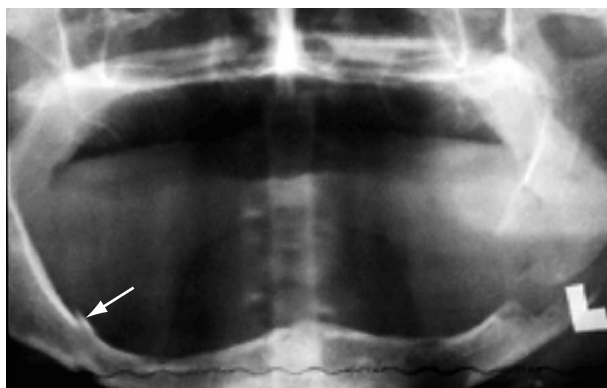
Patient H.Ł., female, aged 82 (medical records No 457/95), was admitted to the Department of Maxillofacial Surgery in June 1995 due to pathologic fracture in the area of the left mandibular angle. She had been previously treated for osteoporosis, cardiac arrhythmia, and cataract; had had gynaecological surgery, and surgery to remove left suborbital tumour (no medical records on the procedure). On the day of admission facial asymmetry was noted resulting from a protrusion in the left suborbital area. A postoperative scar, 13 cm in length, was visible in the area, extending from the temporal region down to the suborbital area. Oedema was present in the left mandibular angle area. A pantomograph revealed an osteolytic defect with a lack of bone continuity (Fig. 1).

In July 1995, under local anaesthesia, a tumour — sized 2 × 2 × 2 cm — was enucleated without a capsule.



Rycina 1. Patologiczne złamanie trzonu żuchwy w rzucie ogniskowo-osteolitycznym (strzałka)

Figure 1. Fracture of mandible body — at the level of osteolytic lesion



Rycina 2. Nadłamanie trzonu żuchwy po stronie przeciwległej do ogniska osteolitycznego (strzałka)

Figure 2. Infraction of mandibular body on the side opposite to osteolytic lesion

ekscentrycznie położone jądra o szprychowatym układzie chromatyny. W pojedynczych komórkach układ chromatyny był zaburzony i pojawiały się pojedyncze jąderka. Obecne były postaci dwu- i trójjąderne plazmacytów. Fragmenty kostne zawierały zwłókniałe przestrzenie międzybelleczkowe ze skąpyimi naciekami z komórek plazmatycznych. Po uzyskaniu wyniku badania histopatologicznego (*plasmacytoma* nr 18837/K) wykonano scyntygrafię kośćca oraz rentgenogramy żeber i czaszki. Scyntygrafia wykazała obecność rozległego obszaru wzmożonego wychwytu MDP-Tc-99m w lewej gałęzi i przyległej części trzonu żuchwy z ogniskowym nagromadzeniem radioznacznika w okolicy lewego kąta oraz kręgu L-3 (ryc. 3). Rentgenogram czaszki nie wykazał zmian patologicznych, natomiast w częściach kostnych żeber i obręczy barkowej stwierdzono cechy osteoporozy bez świeżych przełomów. Badanie krwi wykazało: obecność białka monoklonalnego IgG we krwi, brak w moczu, zmniejszoną liczbę płytek krwi (47/1000), obniżone stężenie albumin (35%) i erytrocytów ($3,7 \cdot 10^{12}/l$). W obrazie szpiku występowały wszystkie formy dojrzewania w układzie granulocytowym, układ czerwono-krwinkowy cechował się odnową normoblastyczną.

Z rozpoznaniem *plasmacytoma* IgG (plazmocyty stanowiły 18% elementów szpiku) pacjentkę skierowano na dalsze leczenie w miejscu zamieszkania w celu zastosowania chemioterapii. U chorej zastosowano również radioterapię. Zalecono używanie gorsetu ortopedycznego usztywniającego okolicę lędźwiowo-krzyżową. Dalsze losy pacjentki nie są znane.

Przypadek 2

Pacjent E.K., lat 64 (nr historii choroby 220/2000), był hospitalizowany w klinice z powodu elastyczno-twardego, niebolesnego guza wielkości $2 \times 2 \times 3$ cm, uwypuklającego wyrostek zębodołowy szczęki w okolicy zębów 11–24. Guz narastał od 6 miesięcy, w chwili przyjęcia był pokryty zaczerwienioną błoną śluzową z odczynem zapalnym. Przed przyjęciem pacjenta do kliniki wykonano punkcję diagnostyczną guza, uzyskując w jej trakcie wypływ treści krwistej. Pobrano wycinek do badania histopatologicznego,



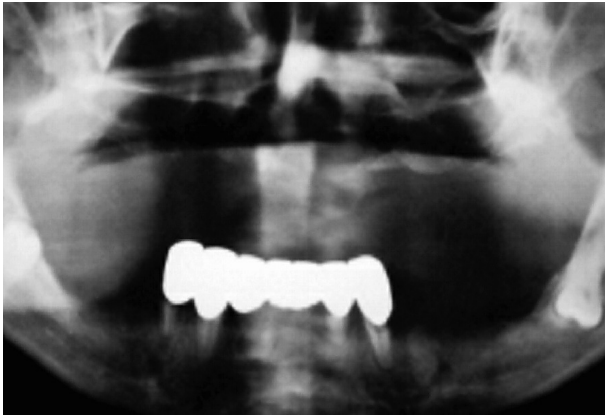
Rycina 3. Scyntygrafia kośćca: wychwyt radioznacznika w okolicy kręgu lędźwiowego i kąta żuchwy po stronie lewej (strzałki)

Figure 3. Scintigraphy: radiomarker uptake in the area of lumbar vertebra and a left mandibular angle

The osseous bed and soft tissues were coagulated. A post-operative pantomograph disclosed a pathologic fracture with bone fragment displacement in the area of surgery, and left mandibular body fracture (Fig. 2). Tissue specimens of 0.3–0.7 cm including bone material were obtained from the resected tumour and sent for histopathologic examination, which revealed dense infiltrations of plasma cells containing abundant basophilic cytoplasm. The majority of mature plasmacytes demonstrated typical eccentric nuclei with a storiform chromatin arrangement. Single cells showed an abnormal chromatin structure and solitary nucleoli. Bi- and trinuclear plasmacytes were also present. Bone material showed fibrosis within the intertrabecular spaces and few plasma cell infiltrations. Following the result of the histopathology (*plasmacytoma* No18837/K), a whole-body skeletal scintigraphy was performed, and rib and skull X-rays were taken. Scintigraphy revealed an area of enhanced MDP-Tc-99m uptake in the left ramus and adjacent mandibular body with focal radioisotope accumulation at the left angle and C3 (Fig. 3). No abnormalities were detected in a skull X-ray whereas the bone fragments of the ribs as well as the shoulder girdle showed evidence of osteoporosis but no indication of recent crises. A blood test revealed the following values: monoclonal immunoglobulin IgG (no IgG in urine), thrombocytopenia (47/1000), decreased albumins (35%), and RBC ($3.7 \cdot 10^{12}/L$). Bone marrow analysis showed all stages of granulocyte development and erythropoiesis was normoblastic. A diagnosis of IgG plasmacytoma was made (plasmacytes accounted for 18% of cellular bone marrow elements), and the patient was referred for chemotherapy to the medical department of her local hospital. Radiotherapy was also carried out. An orthopedic body jacket was recommended for lumbosacral support. The patient was lost to follow-up.

Case 2

Patient E.K., male, aged 64 (medical records No 220/2000), was admitted to the Department of Maxillofacial Surgery due to the presence of an elastic hard painless tumour



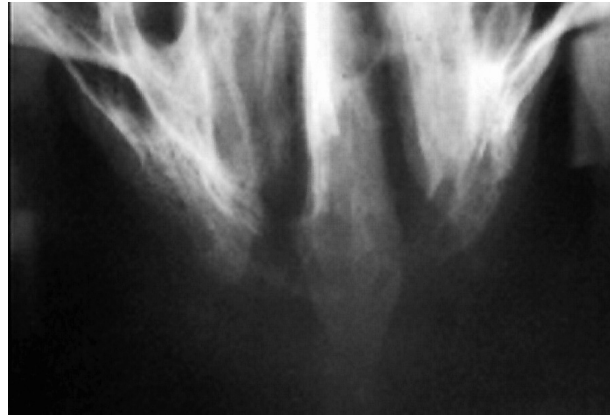
Rycina 4. Widoczna nierówna osteoliza przedniego odcinka szczęki

Figure 4. Uneven distribution of osteolysis in the anterior segment of the maxilla

uzyskując następujący wynik: *inflammatio chronica cum granulacione et proliferacione epitheli plani* (nr 1112630/H). Na rentgenogramie pantomograficznym stwierdzono zatrzymane zęby 38, 48 oraz owalny cień o mniejszym wysyceniu obejmujący okolicę kości przysiecznej (ryc. 4). Zdjęcie rentgenowskie osiowe szczęki (ryc. 5) oraz przylegające tej okolicy potwierdziło obecność zmiany. W obrębie klatki piersiowej nie stwierdzono zmian radiologicznych.

Chorego poddano leczeniu chirurgicznemu. Usunięto guz wyrostka zębodołowego penetrujący do lewej zatoki szczękowej i jamy nosowej z częścią przegrody i obu małżowin nosowych dolnych. Materiał wysłany do badania histopatologicznego zawierał szaro-brunatny guz wyrostka zębodołowego wraz z podłożem kostnym oraz wycinki z przegrody nosa i zatoki szczękowej.

W obrazie mikroskopowym guz był zlokalizowany w błonie śluzowej wyrostka zębodołowego szczęki pod niezmiennym nabłonkiem płaskim. Zbudowany był z gęsto ułożonych polimorficznych komórek plazmatycznych o lekko kwasochłonnej cytoplazmie. Liczne plazmocyty o ekscentrycznie położonych jądrach i zaburzonym układzie chromatyny zawierały drobne jąderka. Plazmocyty występowały w postaciach dwu- i trójjądrowych. Pojawiały się pojedyncze figury podziałowe. W części komórek plazmatycznych występowało okołojądrowe przejaśnienie, tak zwane „halo”. Guz otaczała tkanka łączna włóknista wnikaćca na obwodzie między plazmocyty. W tkance łącznej włóknistej, głównie od strony podłoża kostnego, znajdowały się ogniska osteoplazji oraz skupiska luźno leżących komórek olbrzymich, wielojądrowych typu osteoklasta. Nie znaleziono komórek plazmatycznych w tkance kostnej podłoża guza. W błonie śluzowej wyrostka zębodołowego, wokół guza oraz w wycinkach z przegrody nosa i zatoki szczękowej stwierdzono obecność limfocytarnych nacieków zapalnych. W preparatach histologicznych z guza wykonano odczyn immunohistochemiczne. Komórki plazmatyczne dały dodatni odczyn z przeciwciałem CD 138, ujemny z cytokeratyną, mieloperoksydazą i CD45 (LCA). Reakcja z NSE dała pozytywny wynik w części komórek. Z przesłanych do badania czterech preparatów uzyskano wynik: *plasmocytoma*.



Rycina 5. Badanie rtg osiowe szczęki. Osteoliza kości przysiecznej w przebiegu szpiczaka odosobnionego

Figure 5. Axial X-ray of the maxilla. Solitary plasmacytoma — intermaxillary bone osteolysis

mass (2 × 2 × 3 cm) causing a bulging projection of the alveolar process in the area of the teeth 11–24. Tumour growth had been observed for 6 months; at admission the mass was covered with a reddened inflamed area of mucous membrane. An exploratory puncture of the tumour was performed; sanguinous effluent was obtained, and a specimen was taken for histopathologic examination, the result of which was found to be: *inflammatio chronica cum granulacione et proliferacione epitheli plani* (No 1112630/H). A pantomograph revealed ovoid low-density opacification in the area of intermaxillary bone and unerupted teeth 38, 48 (Fig. 4). Occlusal and periapical films (Fig. 5) confirmed the lesion. Chest x-ray did not show any abnormalities.

During the surgical procedure an alveolar process tumour was removed, penetrating the left maxillary sinus and the nose. Parts of the nasal septum and nasal concha were also excised. Histopathology specimen included greyish-brownish tumour of the alveolar process with bony base as well as portions of the nasal septum and the maxillary sinus.

A microscopic examination showed a tumour originating from the mucous membrane of the alveolar process covered by a normal squamous epithelium. The mass consisted of densely arranged polymorphic plasma cells with slightly eosinophilic cytoplasm. Numerous plasmacytes of eccentric nuclei and abnormal chromatin structure containing tiny nucleoli were found. Bi- and trinuclear plasmacytes were present as well as single mitotic figures. Some plasmacytes exhibited a perinuclear halo. The tumour was encircled with fibrous tissue interspersed between plasma cells. This fibrous tissue showed osteoplastic foci, mainly at the side of the bony base, and loose clusters of osteoclast-like polynuclear giant cells. No plasma cells were found in the bony tissue of the tumour margin. Lymphocytic infiltrate was seen in the mucous membrane of the alveolar process, as well as in the nasal septum and maxillary sinus specimens. Tumour sections were examined using immunohistochemistry; plasma cells were found to be positive for CD 138, and negative for cytokeratine, myeloperoxidase, and CD 45 (LCA). Some

Pacjenta skierowano na konsultację do Instytutu Onkologii w Gliwicach, gdzie wykonano CT części twarzowej czaszki oraz scyntyografię całego kośćca. Wyniki tych badań nie wykazały innych zmian patologicznych. Pacjenta zakwalifikowano do ambulatoryjnej radioterapii, którą kontynuowano przez 6 tygodni. Napromieniano okolicę guza szczęki dawką 46 Gy/guz. Przeprowadzane badania kontrolne w okresie 2 lat od operacji nie wykazały cech wznowy miejscowej i uaktywnienia choroby.

Dyskusja

Plazmocytoza jest określeniem izolowanej postaci szpiczaka, która może występować w kości lub tkankach miękkich. W jej przypadku nie ma innych ognisk chorobowych w układzie kostnym i brak odchyłań w rozmazie szpiku przy normalnych parametrach krwi i moczu. W zaawansowanej postaci choroby spośród najważniejszych odchyłań w badaniach laboratoryjnych zwraca uwagę obniżone stężenie hemoglobiny (< 8,5 g/dl), podwyższone stężenie wapnia we krwi (> 12 mg/dl), wysokie stężenie białka M (IgG > 7 g/dl) i zwiększone wydzielanie białka Bence-Jonesa w moczu (> 12 g/24 godz). Odpowiada to trzeciemu okresowi choroby, który w powiązaniu z rozległymi zmianami litycznymi w kości i nieprawidłowym rozmazem szpiku (plazmocyty powyżej 10%) rokuje niepomyślnie w przebiegu choroby. Konsekwencjami szpiczaka plazmocytozowego są: anemia, możliwość uszkodzenia nerek przez nadmiar białka, uszkodzenie kości z patologicznymi złamaniami, upośledzenie odporności poprzez zmniejszenie produkcji przeciwciał oraz konsekwencje podwyższonego stężenia wapnia, które prowadzą do odwodnienia, zaparc i osłabienia organizmu [8]. Mazur i wsp. [9] oraz Mozzafari i wsp. [10] zwracają uwagę na zwiększone ryzyko krwawienia w przebiegu szpiczaka spowodowane zmniejszeniem liczby płytek krwi, ich funkcji oraz obniżeniem czynnika VIII.

W analizowanym pierwszym przypadku 82-letniej pacjentki (na podstawie wyników badań krwi, moczu, rozmazu szpiku i prześwietlenia układu kostnego) autorzy mieli do czynienia z w pełni rozwiniętym procesem chorobowym. W piśmiennictwie rzadko notowano patologiczne złamania żuchwy, które tu wystąpiły, zarówno w rzucie zmiany osteolitycznej, jak i po przeciwnej stronie trzonu żuchwy [11, 12]. Zastanawiający był mylny obraz radiologiczny przypominający raczej torbiel niż patologię nowotworową. Dlatego też nie można ustrzec się problemów z gojeniem czy krwawieniem, o którym donoszą autorzy, ostrzegając przed interwencją chirurgiczną u tych pacjentów [9, 12]. Według Jastrzębskiego i wsp. [12] zabiegi chirurgiczne należy ograniczyć do niezbędnych. Autorzy ci leczyli własny przypadek patologicznego złamania zachowawczo — ortopedycznie, głównie ze względu na pogarszający się stan ogólny pacjenta.

Obraz radiologiczny w przebiegu szpiczaka nie jest typowy również zdaniem autorów, którzy stawiali nieadekwatne do histopatologii guza wstępne rozpoznanie szpiczaka jako guza olbrzymiokomórkowego, śluzaka, szkliwiaka czy też jako torbieli [5, 13].

W drugim przypadku proces chorobowy był rzadki ze względu na lokalizację, stopień zaawansowania i obraz

cells were also found to be NSE-positive. The above results confirmed the diagnosis of plasmacytoma.

A specialist consultation was requested in the Institute of Oncology in Gliwice resulting in a facial CT and a whole-body scintigraphy of the skeletons being performed. The results did not reveal any so-far-undetected pathology. The patient was referred for ambulant radiotherapy, to be continued for six weeks; a dose of 46 Gy was given to the tumour site. A follow-up during a period of two years following the operative procedure has not revealed local recurrence or disease activation.

Discussion

Plasmacytoma is a single-tumour form of myeloma, which may develop in the bone or soft tissues. There are no associated disease foci in the skeletal system. Therefore, no abnormalities are usually found in bone marrow smears; blood and urine tests are within the reference range. In advanced stages, laboratory results show haemoglobin level decrease (< 8.5 g/dl), blood calcium elevation (> 12 mg/dl), high M protein (IgG > 7 g/dl), and Bence-Jones proteinuria (> 12 g/24 h). Such a clinical picture is consistent with stage III of the disease, characterized by solid lesions in the bone, and abnormal bone marrow (plasmacytes > 10%), which worsens the prognosis. Plasmacytoma may result in anaemia, excessive protein induced renal injury, bone loss with pathologic fractures, compromised immunity due to decreased antibody production, and consequences of an increased calcium level, *i.e.*, dehydration, constipation and debilitation [8]. Mazur *et al.* [9] and Mozzafari *et al.* [10] emphasize an increased bleeding tendency caused by thrombocytopenia, compromised platelet function, and a decreased level of factor VIII.

In the case of our 82-year old patient, the pathology was fully developed as suggested by blood and urine tests, bone marrow smear, and skeleton X-ray. There are only scarce literature reports on mandibular fracture [11, 12], which was seen here both at the level of an osteolytic lesion, and on the opposite side of the mandible — as a pathologic fracture. Of interest is the misleading radiological picture which seems to be consistent with a cyst rather than with neoplastic pathology. Some authors advised against surgical intervention in such patients as bleeding or healing problems might be encountered [9, 12]. According to Jastrzębski *et al.* [12] surgery should be restricted to cases not treatable by less-invasive means; their patient with a pathologic fracture underwent orthopaedic management only because his general condition became aggravated.

Radiological studies often yield atypical pictures, and presumptive diagnoses of giant cell tumour, myxoma, adamantinoma or cyst are not confirmed by final histopathology results [5, 13].

Considering the site, severity, and clinical picture, the pathologic process in our older patient was of course, rare. Rather than in the maxilla, myeloma has been more frequently observed in the mandible [14]. When diagnosed, maxillary myeloma was very unfrequently located in anterior part of the bone. In a series of 193 patients

kliniczny. Pisano i wsp. [14] stwierdzili szpiczaki częściej w zuchwie niż szczęce, a w tej ostatniej lokalizacji najrzadziej w odcinku przednim, tak jak to miało miejsce w przypadku autorów. Lambertenghi-Delilieri i wsp. [6] w grupie 193 pacjentów ze szpiczakiem mnogim w żadnym przypadku nie stwierdzili zmian osteolitycznych w szczęce.

Analizując wszystkie wyniki badań u 64-letniego mężczyzny, można mówić o szpiczaku odosobnionym, który według Bolka i wsp. [13] daje 50-procentową szansę 10-letniego przeżycia, w przeciwieństwie do 3-procentowej szansy przeżycia w przebiegu szpiczaka mnogiego. Obraz kliniczny, w którym elastyczny guz był pokryty zaczerwienioną błoną śluzową, początkowo sugerował naciek zapalny. Kanazawa i wsp. [5] i wielu innych autorów, podając objawy szpiczaka w jamie ustnej, opisywali obrzęki czy też chełboczące nacieki, ale z reguły w tych przypadkach błona śluzowa czy skóra były niezmiennie zapalnie [10, 14, 15]. Mozzafari i wsp. [10] po nacięciu takiego nacieku bogatego w plazmocyty z uwagi na krwotok byli zmuszeni chirurgicznie zaopatrzyć tkanki.

Obraz radiologiczny uzyskany u pacjenta budził czujność onkologiczną. Nierówna osteoliza bardziej przemawiała za procesem nowotworowym niż odczynowym czy zapalnym. W związku z tym dalszą diagnostykę przeprowadzono z większą pieczołowitością niż w pierwszym przypadku. Na podstawie dodatkowych badań nie stwierdzono zaawansowania procesu chorobowego i innych ognisk niszczenia kości. Według niektórych autorów choroba w tym stadium może się w każdej chwili uaktywnić i stanowić początek schorzenia określanego jako szpiczak mnogi [4, 5]. Przypadki te uwrażliwiają na potrzebę dokładnej i zarazem ostrożnej diagnostyki ze względu na ryzyko krwawień, zakażeń i złamań.

Piśmiennictwo (References)

- Cielińska S, Urbaniak-Kujda D, Gabryś K *et al.* Współistnienie szpiczaka plazmocytozowego i raka jasnokomórkowego nerki. *Pol Arch Med Wew.* 2001; 2: 153–155.
- Corwin J, Lindberg RD. Solitary plasmacytoma of bone vs. extramedullary plasmacytoma and their relationship to multiple myeloma. *Cancer* 1979; 43: 1007–1013.
- Witt C, Borges A, Klein K *et al.* Radiographic manifestations of multiple myeloma in the mandible: A retrospective study of 77 patients. *J Oral Maxillofac Surg.* 1997; 55: 450–453.
- Loh HS. A retrospective evaluation of 23 reported cases of solitary plasmacytoma of the mandible, with an additional case report. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 1984; 22: 216–224.
- Kanazawa H, Shoji A, Yokoe H *et al.* Solitary plasmacytoma of the mandible. Case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 1993; 21: 202–206.
- Lambertenghi-Delilieri G, Bruno E, Cortelezzi A *et al.* Incidence of jaw lesions in 193 patients with multiple myeloma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1988; 65: 533–537.
- Lindqvist C, Soderholm AL, Laine P *et al.* Rigid reconstruction plates for immediate reconstruction following mandibular resection for malignant tumors. *J Oral Maxillofac Surg.* 1992; 50: 1158–1163.
- Rokicka-Piotrowicz M, Paszkowska M, Król M *et al.* Analiza przyczyn niedokrwistości u chorych na szpiczaka mnogiego. *Pol Arch Med Wew.* 2000; 104: 843–851.

with multiple myeloma, Lambertenghi-Delilieri *et al.* [6] found no osteolytic lesions within the maxilla.

Examination results in our 64-year old male patient suggest solitary plasmacytoma, which, according to Bolek *et al.* [13], has a 10-year survival rate of 50% as opposed to 3% in a case of multiple myeloma. The clinical picture of an elastic tumour covered with reddened mucous membrane was initially suggestive of an inflammatory infiltrate. Kanazawa *et al.* [5] and numerous other authors have reported symptoms like a swelling or a fluctuating swelling; however, the skin or mucous membrane remained uninfamed [10, 14, 15]. Mozzafari *et al.* [10] incised a plasmacyte-abundant infiltrate with a resultant haemorrhage and surgical tissue dissection.

The radiological picture obtained in our patient prompted oncological alertness as uneven osteolysis distribution was more characteristic of a neoplastic than inflammatory process. Thus, more extensive diagnostic procedures were carried out than those used to treat our Case 1 patient, where all accessory investigations did not disclose advanced disease or other foci of bone destruction. However, according to numerous authors a solitary plasmacytoma may progress to a multiple myeloma [4, 5]. This emphasizes the need for meticulous diagnostic procedures, which should be performed very carefully due to the considerable risk of bleeding, infection, and fracture.

- Mazur G, Wróbel T, Podola-Dawidziak M *et al.* Nabyta choroba von Willebranda u chorego na szpiczaka mnogiego. *Pol Med Rodzinna* 2001; 3: 55–59.
- Mozzafari E, Mupparapu M, Otis L. Undiagnosed multiple myeloma causing extensive dental bleeding: report of case and review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2002; 94: 448–453.
- Furutani M, Ohnishi M, Tanaka Y. Mandibular involvement in patients with multiple myeloma. *J Oral Maxillofac Surg.* 1994; 52: 23–25.
- Jastrzębski S, Kamińska E. Złamanie patologiczne zuchwy w przebiegu siatkowiaaka plazmocytozowego. *Reumatologia* 1990; 28: 65–66.
- Bolek M, Sztuk S, Urbanik A *et al.* Obraz radiologiczny szpiczaka pojedynczego kości. *Pol Prz Radiol.* 1999; 64: 155–156.
- Pisano JJ., Coupland R, Chen SJ *et al.* Plasmacytoma of the oral cavity and jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1997; 83: 265–271.
- Tamir R, Pick AI, Calderon S. Plasmacytoma of the mandible: a primary presentation of multiple myeloma. *J Oral Maxillofac Surg.* 1992; 50: 408–413.

Adres do korespondencji (Address for correspondence):

Dr med. Iwona Niedzielska
Katedra i Klinika Chirurgii Szczękowo-Twarzowej
Śląskiej Akademii Medycznej
ul. Francuska 20/24, 40–027 Katowice
tel./faks: (032) 256–26–49
e-mail: klinchirurg@slam.katowice.pl

Praca wpłynęła do Redakcji: 18.01.2005 r.