

# Prenatalna diagnostyka guzów jamy ustnej – opis dwóch przypadków oraz przegląd piśmiennictwa

## Prenatal ultrasonographic diagnosis of congenital epulis – two case reports and literature review

Foryś Sebastian<sup>1</sup>, Krajewski Jan<sup>2</sup>, Krasomski Grzegorz<sup>3</sup>, Makowski Andrzej<sup>4</sup>, Zieliński Andrzej<sup>5</sup>, Kulig Andrzej<sup>6</sup>, Respondek-Liberska Maria<sup>7</sup>

<sup>1</sup> Zakład Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych, Instytut Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi

<sup>2</sup> Kliniki Położnictwa i Ginekologii, Instytut Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi

<sup>3</sup> Klinika Położnictwa i Ginekologii, Instytut Centrum Zdrowia Matki Polki i Uniwersytetu Medycznego w Łodzi

<sup>4</sup> Klinika Laryngologii, Instytut Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi

<sup>5</sup> Katedra Morfologii i Embriologii, Wydział Pielęgniarstwa i Embriologii, Uniwersytetu Medycznego w Łodzi

<sup>6</sup> Zakład Patomorfologii, Instytut Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi

<sup>7</sup> Zakład Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych, Uniwersytetu Medycznego (Katedra Morfologii i Embriologii) & Instytut Centrum Zdrowia Matki Polki w Łodzi

### Streszczenie

*Przedstawiono prenatalną diagnostykę ultrasonograficzną dwóch rzadkich przypadków guzów twarzoczaszki typu epulis, spośród 13 792 pierwszorazowych badań u ciężarnych kierowanych przez położników do Zakładu Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych ICZMP w latach 1994-2009 (częstość występowania anomalii w ośrodku referencyjnym dla wad płodu ok. 1:7000).*

*Omówiono diagnostykę USG, zasady badania drożności jamy ustnej płodu pod kątem kwalifikacji do procedury EXIT oraz diagnostykę różnicową.*

Słowa kluczowe: **guzy jamy ustnej / epulis / epignatus / diagnostyka prenatalna /**

### Abstract

*The following work presents prenatal ultrasonographic examination of two rare fetal cases of epulis, among 13 792 fetuses referred to our unit due to suspected fetal anomalies by obstetricians (estimated prevalence 1/7000 among fetuses with different anomalies). Sonographic differential diagnosis, value of fetal nasal amniotic fluid flow assessment by color Doppler and the probability of EXIT procedure have been described.*

Key words: **mouth neoplasm / epulis / epignatus / prenatal diagnosis /**

### Adres do korespondencji:

Maria Respondek-Liberska  
Zakład Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych, Instytut Centrum Zdrowia Matki Polki  
93-338 Łódź, ul. Rzgowska 281/289  
e-mail: majkares@uni.lodz.pl

Otrzymano: **05.02.2010**  
Zaakceptowano do druku: **15.05.2010**

W prenatalnym badaniu ultrasonograficznym można wykryć i rozpoznać u płodu między innymi różne guzy zlokalizowane w obrębie twarzoczaszki. Są to sporadyczne przypadki, dotąd nie opisywane w polskim piśmiennictwie.

W Zakładzie Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych ICZMP (ZDiPWW) w Łodzi w latach od 1994 do 2009 wykonano 13792 pierwszorazowych badań USG u ciężarnych i u dwóch płodów zdiagnozowano obecność guza w obrębie jamy ustnej.

### Przypadek 1

W 2001 roku do ZDiPWW skierowano ciężarną w 37 tygodniu ciąży, (C3P1) w ciąży wysokiego ryzyka, po wcześniejszych dwóch epizodach poronienia. Poprzednie badania w aktualnej ciąży (6, 14, 25, 36 hbd) opisano jako prawidłowe, w 37 tygodniu uwidocznił guz w obrębie twarzy.

W badaniu USG w ZDiPWW u płodu płci żeńskiej uwidocznił wychodzący z jamy ustnej owalny guz o wymiarach 2x3cm o jednolitej echogeniczności z widocznymi pojedynczymi naczyniami odżywczymi. (Fot. 1 i 2).

Dziewczynka urodzona 3 dni później przez cesarskie cięcie, poprzedzone przygotowaniem do procedury EXIT (*Ex Utero Intrapartum Treatment*), o masie ciała 4200g, Apgar 7 punktów.

W trakcie porodu na sali porodowej obecni byli: położnik, anestezjolog (dla ciężarnej), neonatolog, laryngolog, chirurg, anestezjolog (dla noworodka). Noworodek po wydobyciu z jamy macicy był w dobrym stanie ogólnym, nie wymagał intubacji, pępowina została odcięta bez opóźnienia. Guz został usunięty na sali porodowej przez laryngologa, bezpośrednio po porodzie.

W badaniu histopatologicznym potwierdzono rozpoznanie – *Epulis*. Dziewczynka 7 dni po porodzie została wypisana do domu w stanie ogólnym dobrym, karmiona naturalnie.

### Przypadek 2

W 2009 roku do ZDiPWW skierowaną ciężarną w 34 tygodniu ciąży (C1P1), w ciąży niskiego ryzyka z powodu obecności torbieli w obrębie jamy ustnej.

We wcześniejszych badaniach w 17, 20, 23 hbd nie uwidocznił nieprawidłowości z zakresu twarzoczaszki. W 32 tygodniu uwidocznił torbielowaty twór w obrębie jamy ustnej. W badaniu USG w 34 tygodniu w ZDiPWW u płodu płci żeńskiej uwidocznił okrągłego kształtu guz wychodzący z jamy ustnej o średnicy 2cm, z pojedynczym naczyniem, oraz dodatkowy owalny guz o średnicy do 13mm w obrębie jamy ustnej po stronie lewej na łuku zębowym szczęki górnej. (Fot 3, 4, 5).

Dodatkowo podjęto próbę sonograficznej oceny drożności jamy nosowej i jamy ustnej za pomocą badania Dopplerem przepływów płynu owodniowego (tę technikę badania stosujemy w naszym ośrodku od roku 2008). W trakcie badania zarejestrowano prawidłowe przepływy płynu owodniowego przez jamę nosową w obu kierunkach za pomocą techniki kolorowego Dopplera jak i Dopplera spektralnego. (Fot. 6, 7).

Podobne obrazy zarejestrowano w trakcie kontrolnego badania 2 tygodnie później, pomimo uwidocznienia niewielkiego przyrostu średnicy guza do 3cm. Dziewczynka urodzona została następnego dnia przez cesarskie cięcie bez procedury EXIT, o masie ciała 3100g i Apgar 9 punktów. (Fot. 8, 9).

W trakcie porodu na sali porodowej obecni byli: położnik, anestezjolog (dla ciężarnej), neonatolog, laryngolog, anestezjolog (dla noworodka). Guz został usunięty na sali porodowej przez

laryngologa bezpośrednio po porodzie. W badaniu histopatologicznym potwierdzono rozpoznanie – *Epulis*.

### Omówienie

Guzy w obrębie jamy ustnej to bardzo rzadkie zmiany obserwowane w okresie prenatalnym. W naszym materiale dotyczącym ciąży wysokiego ryzyka i płodów z podejrzeniem anomalii kierowanych z terenu całej Polski częstość występowania anomalii wynosi około 1:7000 płodów. Do zmian, które można uwidocznilić w prenatalnym badaniu ultrasonograficznym w okolicy jamy ustnej płodu należą: *epulis*, *epignatus*, oraz *cephalocele*.

W niniejszym omówieniu przedstawiamy dwa aspekty guzów jamy ustnej płodu: diagnostykę różnicową oraz możliwość oceny drożności jamy ustnej płodu przed podjęciem decyzji o sposobie porodu (klasyczne cięcie cesarskie czy cięcie cesarskie z wydobyciem noworodka i zabiegiem chirurgicznym przed odcięciem pępowiny – tzw. Procedurę EXIT).

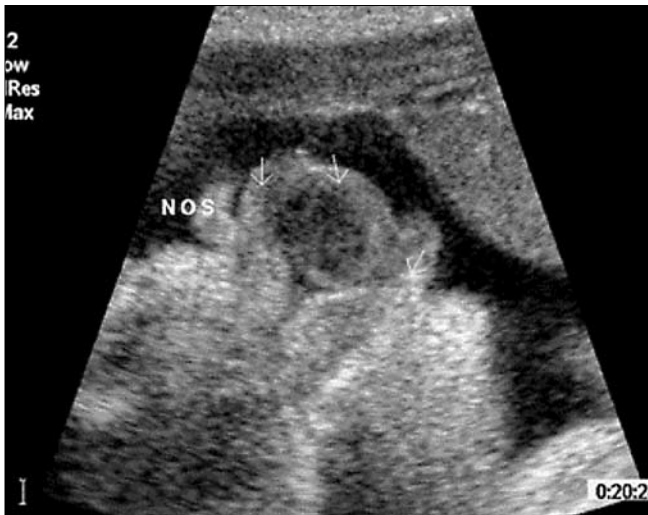
W przypadku stwierdzenia u płodu guza jamy ustnej w diagnostyce różnicowej należy brać pod uwagę: *epulis*, *epignatus* (*teratoma*) lub *cephalocele*. (Tabela I).

*Epulis* czyli inaczej guz Neumana (wrodzony ziarniak dziąsłowy) jest guzem łagodnym, jak dotąd opisano około 200 przypadków rozpoznanych pourodzeniowo i kilka przypadków rozpoznania prenatalnego [1, 2, 3, 4]. Guz ten rozwija się z błony śluzowej dziąsła najczęściej ze szczęki. Rozmiar guza w największym wymiarze osiąga kilka centymetrów. Do rzadkich powikłań należy wielowodzie, będące następstwem zaburzeń połykania u płodu. Guz ten występuje 8 razy częściej u płodów płci żeńskiej [3]. W naszym materiale 2 razy wystąpił on u dziewczynek. Ze względu na powolny lub późny wzrost, guz ten najczęściej jest rozpoznawany w trzecim trymestrze ciąży. Jest to guz o okrągłym kształcie, o jednorodnej budowie, skąpo unaczyniony. Taki prosty typ guza wystąpił w pierwszym z naszych przypadków, w drugim był natomiast niejednorodny: okrągły, ale z dodatkową zmianą owalną. (Fot 3).

Guz ten rośnie powoli i jest najczęściej rozpoznawany w III trymestrze ciąży [2, 5, 6]. Dawniej guz ten był rozpoznawany po porodzie. Pourodzeniowo zwykle nie obserwowano dalszego wzrostu guza, były też opisywane przypadki samoistnej regresji [3, 7, 8, 9]. Opisano jednak konieczność wykonania procedury EXIT po prenatalnej diagnozie *epulis* [10]. Do najczęstszych opisywanych powikłań, które mogą wystąpić w okresie prenatalnym należy wielowodzie na skutek zaburzeń połykania u płodu. Powikłanie to ze względu na powolny wzrost, niewielkie rozmiary i późne pojawienie się guza opisywano stosunkowo rzadko [1, 11, 12, 13, 14, 15].

*Epignatus*, czyli potwornik ustno-gardłowy (*oropharyngeal teratoma*), występuje z częstotliwością od 1:35000 do 1:200000 żywo urodzonych noworodków, z częstszym występowaniem u płodów płci żeńskiej 3:1 [16, 17, 18, 19, 20]. Częstość występowania potwornika w okolicy głowy i szyi opisywana jest na 6-10% wszystkich potworników [17, 21]. Guz ten wywodzi się ze wszystkich listków zarodkowych, jego punktem wyjścia jest podstawa czaszki, a najczęściej wychodzi z podniebienia twardego lub zuchwy. Guz ten występuje 3 razy częściej u płodów płci żeńskiej niż męskiej [19]. Rozpoznanie tego guza wiąże się ze złym rokowaniem ze względu na wczesny rozwój guza i szybki wzrost powodujący niewydolność krążenia płodu. Zgony następują zwykle u płodu lub u noworodka.

## Prenatalna diagnostyka guzów jamy ustnej...



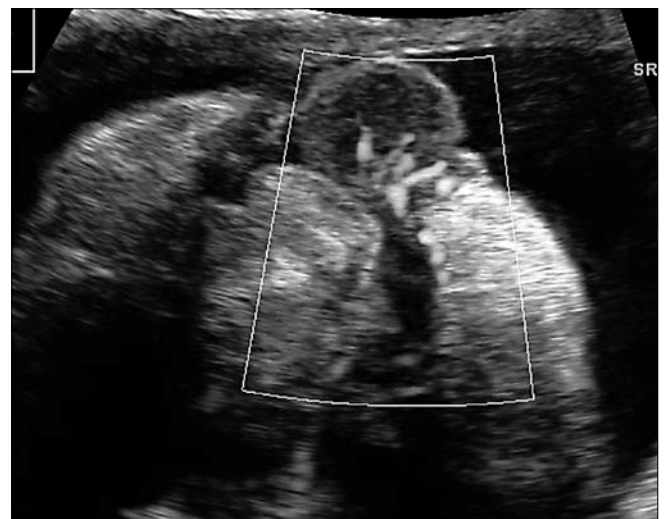
**Rycina 1.** Obraz 2D guza wychodzącego z jamy ustnej w osi strzałkowej. (Przypadek nr 1).



**Rycina 4.** Obraz 3D guza wychodzącego z jamy ustnej – badanie z 34 tygodnia ciąży. (Przypadek nr 2).



**Rycina 2.** Obraz 2D guza wychodzącego z jamy ustnej w przekroju wieńcowym. (Przypadek nr 1).



**Rycina 5.** Obraz 2D guza wychodzącego z jamy ustnej w przekroju wieńcowym przez wyrostek zębodołowy szczęki z unaczynieniem od tętnicy szczękowej z wykorzystaniem techniki HD FLOW – 34 tydzień ciąży. (Przypadek nr 2).



**Rycina 3.** Obraz 2D guza wychodzącego z jamy ustnej w przekroju poprzecznym przez wyrostek zębodołowy szczęki, po stronie prawej widoczny drugi owalny guz – badanie z 34 tygodnia ciąży. (Przypadek nr 2).



**Rycina 6.** Przepływ płynu owodniowego przez jamę nosową z użyciem techniki Dopplera „wydech” – badanie z 34 tygodnia ciąży).

Guz ten ma najczęściej różnorodną budowę: litą, torbielowatą lub mieszaną. W piśmiennictwie najwcześniej rozpoznany *epignatus* był w 16 tygodniu ciąży [19]. Większość jednak potworników ustno-gardłowych rozpoznawano w III trymestrze ciąży [16]. Do najczęstszych powikłań w przebiegu potwornika należy wielowodzie, które jest spowodowane utrudnieniem połykania płynu owodniowego przez płód, to z kolei po urodzeniu może powodować utrudnienie w oddychaniu i połykaniu [17, 19, 20, 22, 23, 24, 25].

Kolejnym powikłaniem obserwowanym w życiu płodowym jest niewydolność krążenia związana z wielkością guza, jego budową oraz unaczynieniem. Do rzadkich powikłań *epignatus* należy też wewnątrzczaszkowy wzrost guza. W przypadku wcześniej rozpoznanych dużych lub szybko rosnących, dobrze unaczynionych guzów rokowanie, co do przeżycia jest bardzo poważne.

*Cephalocele* (przepuklina mózgowa) jest to nieprawidłowość związana z zaburzeniem rozwoju cewy nerwowej. Ze względu na bliskość cewy nerwowej z jamą ustną istnieje możliwość powstania przepukliny wypełniającej i wychodzącej z jamy ustnej. Jak do tej pory opisano jeden przypadek rozpoznania prenatalnego. Wygląd, wielkość i kształt przepukliny zależne są od zawartości worka przepuklinowego. Do powikłań tej nieprawidłowości należy wielowodzie na skutek zablokowania przepływu w obrębie jamy ustnej i nosowej [26].

Do innych guzów mogących wystąpić w okolicy twarzoczaszki należy guz Kassabach-Merrita lub innego typu naczyńki, ale ponieważ mają one inną charakterystykę sonograficzną (są zwykle miękkie, o nieregularnych kształtach, dobrze unaczynione) nie brano ich pod uwagę w diagnostyce różnicowej omawianych wyżej przypadków [27].

W materiale Zakładu Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych oba przedstawione przypadki guzów wychodzących z jamy ustnej były guzami Neumana.

W pierwszym przypadku ze względu na pierwszorazowe wykrycie guza oraz brak możliwości na ówczesnym etapie potwierdzenia zachowania drożności przewodu pokarmowego, nie było wiadomo czy noworodek po urodzeniu będzie wydolny oddechowo. Z tego też powodu zespół perinatologiczny pod przewodnictwem położnika zaplanował poród drogą cięcia cesarskiego z zastosowaniem techniki EXIT. Po wydobyciu noworodka i potwierdzeniu zachowania drożności jamy ustnej i wydolności oddechowej, zakończono cięcie cesarskie w sposób klasyczny i dokonano zabiegu usunięcia guza bez zbędnego pośpiechu.

Technika EXIT została po raz pierwszy wprowadzona i opublikowana w 1997r. przez zespół z *Children's Hospital of Philadelphia* [28]. Do tej pory opisano wielokrotnie wykonywanie tej procedury w wyniku diagnostyki prenatalnej zarówno w przypadku dużych mas twarzoczaszki i/lub szyi płodu (*teratoma, cystic hygroma*), ale także w przypadku epulis [10, 29, 30].

W trakcie prenatalnego badania ultrasonograficznego u prezentowanych płodów uwidoczono swobodny przepływ płynu owodniowego przez jamę nosową płodu w obu kierunkach (wykorzystano technikę HD-FLOW). Technikę tę stosujemy w naszym ośrodku rutynowo od 2008r, dlatego nie była ona zastosowana w przypadku nr 1.

W drugim przypadku poród odbył się drogą planowego klasycznego cięcia cesarskiego bez techniki EXIT. W trakcie prenatalnego badania ultrasonograficznego potwierdzono swobodny przepływ płynu owodniowego przez jamę nosową płodu w obu kierunkach (wykorzystano technikę HD-FLOW), oraz prawidłowe połykanie.

Kolejnym objawem, który sugerował zachowanie drożności w obrębie gardła była prawidłowa objętość płynu owodniowego w kolejnych dwóch badaniach, w 34 i 36 tygodniu ciąży, ale brak monitorowania AFI w dłuższym czasie powodował, iż opieranie się tylko na wskaźniku AFI w ciągu 2 tygodni okresu obserwacji mogłoby być zbyt ryzykowne.

Tabela 1. Sonograficzne cechy guzów jamy ustnej.

	<i>Epulis</i>	<i>Epignatus</i>	<i>Cephalocele</i>
<b>Synonimy</b>	Guz Neumana, wrodzony ziarniak dziąsłowy	Potworniak ustno-gardłowy	Przepuklina mózgowa
<b>Pochodzenie guza</b>	Górna szczeka	Linia pośrodkowa ciała, podstawa czaszki, podniebienie twarde, żuchwa	Przepuklina mózgowa z podstawy czaszki
<b>Wielkość guza</b>	Do kilku centymetrów	Różna wielkość, do dużych rozmiarów	Różna wielkość
<b>Kształt guza</b>	Okrągły, owalny, o gładkich zarysach	Niejednorodny	Okrągły, owalny
<b>Echogeniczność guza</b>	Jednorodna	Niejednorodna	Zależna od zawartości
<b>Zajęcie czaszki</b>	Nie	Możliwe	Tak
<b>Czas rozpoznania prenatalnego</b>	W III trymestrze ciąży	Od I trymestru ciąży	Od I trymestru ciąży
<b>Kobieta: Mężczyzna</b>	8:1	3:1	
<b>Unaczynienie guza</b>	Skąpe unaczynienie	Bogate unaczynienie	Zależne od zawartości
<b>Współistniejące wielowodzie</b>	Rzadko	Często	Możliwe
<b>Współistniejąca niewydolność krążenia</b>	Nie występuje	Zależne od wielkości guza	Nie występuje

## Prenatalna diagnostyka guzów jamy ustnej...



**Rycina 7.** Przepływ płynu owodniowego przez jamę nosową z użyciem techniki Dopplera. Po stronie lewej „wdech”, po stronie prawej „wydech” – badanie z 36 tygodnia ciąży.



**Rycina 8.** Obraz guza po porodzie, zdjęcie z sali porodowej (dzięki uprzejmości Prof. A. Makowskiego).



**Rycina 9.** Zdjęcie noworodka na oddziale neonatologicznym 7 dni po zabiegu usunięcia guza (zdjęcie dzięki uprzejmości rodziców).

Sprawdzanie drożności jamy ustnej i jamy nosowej płodu jest opisywane w piśmiennictwie od dawna, głównie u płodów zdrowych, ale nie opisano dotychczas wykorzystania tej techniki w przypadku obecności guza jamy ustnej. Wydaje się, że przypomnienie tej techniki może być istotne w praktyce ultrasonograficznej wielu ośrodków [31].

Jednym z pierwszych badaczy, którzy zwrócili uwagę na możliwość oceny przepływu płynu owodniowego w jamie nosowej u płodu był Kalache [32]. Ponad 20 lat temu opisał on zasadę oceny ruchu płynu owodniowego w drogach oddechowych płodu na podstawie obserwacji 10 zdrowych „pacjentów” między 28 a 38 tygodniem ciąży. Obserwacje te zostały potwierdzone przez Cosmiego i wsp. Przepływ płynu owodniowego w obrębie jamy ustnej płodu można zarejestrować począwszy od II połowy ciąży, co jest związane z pojawianiem się ruchów „oddechowych” płodu, w tym głównie przepony. Ruchy te nasilają się począwszy do 21 tyg. ciąży [31].

Według Suzuki począwszy od 28 tygodnia u zdrowych płodów pojawiają się regularne „ruchy oddechowe” [33]. Stwierdzono pozytywną korelację pomiędzy przepływem płynu owodniowego w jamie nosowej (prędkość maksymalna) a wiekiem ciążowym oraz poprzecznym wymiarem płuca. Wnioskowano, zatem że zmiany w obrębie prędkości maksymalnej przepływu krwi w jamie nosowej są odzwierciedleniem strukturalnego i czynnościowego rozwoju płuc płodu.

W obydwu prezentowanych przez nas przypadkach badanie echokardiograficzne potwierdzało pełną wydolność układu krążenia oraz dojrzałość płuc płodu na podstawie rutynowo stosowanej w naszym ośrodku oceny spływu żył płucnych do lewego przedsionka oraz czynnościowej oceny płuca prawego oraz lewego u płodu. W dotychczasowym piśmiennictwie nie podnoszono możliwości oceny górnego odcinka dróg oddechowych płodu w przypadku patologii mogącej stanowić przeszkodę w intubacji noworodka po porodzie.

Dobra diagnostyka ultrasonograficzna z wykorzystaniem techniki Dopplera umożliwiła w naszym ośrodku poprzestanie na sonograficznej diagnostyce obrazowej ze względu na obrazy stosunkowo proste do interpretacji. Prawdopodobnie w innych przypadkach nietypowych należałoby brać pod uwagę dodatkowe badanie płodu za pomocą stosunkowo drogiej techniki MRI [2, 5]. Przeciwwskazaniem do jej wykonania może być klaustrofobia ciężarnej lub jej dyskomfort związany z hałasem.

Powyższy problem jest kolejnym z problemów, które były w szerszym aspekcie analizowane w Zakładzie Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych ICZMP. Poprzednio dotyczyło to przepukliny pępowinowej i wad układu moczowego [34, 35, 36].

Wykorzystanie współczesnych technik ultrasonograficznych w trakcie badań ultrasonograficznych u ciężarnych z rozpoznanymi wadami w obrębie jamy ustnej pozwala z dużym prawdopodobieństwem nie tylko na potwierdzenie diagnozy w ośrodku referencyjnym, ale umożliwia także przewidzenie stanu noworodka po porodzie, oraz wcześniejsze skompletowanie niezbędnego zespołu lekarzy dla konkretnego pacjenta: płodu i noworodka.

## Piśmiennictwo

- Williams R, Grave B, Stewart M, [et al.]. Prenatal and postnatal management of congenital granular cell tumours: a case report. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2009, 47, 56-58.
- Kim S, Won H, Lee S, [et al.]. Prenatal diagnosis of congenital epulis by three-dimensional ultrasound and magnetic resonance imaging. *Prenat Diagn.* 2006, 26, 171-174.
- Pellicano M, Zullo F, Catizone C, [et al.]. Prenatal diagnosis of congenital granular cell epulis. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 1998, 11, 144-146.
- Chen C, Shih J, Huang J [et al.]. Two- and three-dimensional ultrasound demonstration of a giant epignathus. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2003, 21, 407-409.
- Kim Y, Kim H, Lee N, [et al.]. Congenital epulis: prenatal ultrasonographic and postnatal MR features with pathologic correlation. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2008, 106, 743-748.
- Thoma V, Idrissi B, Kohler M, [et al.]. Prenatal diagnosis of congenital epulis. A case study. *Fetal Diagn Ther.* 2006, 21, 321-325.
- Roy S, Sinsky A, Williams B, [et al.]. Congenital epulis: prenatal imaging with MRI and ultrasound. *Pediatr Radiol.* 2003, 33, 800-803.
- Charrier J, Droullé P, Vignaud J, [et al.]. Obstructive congenital gingival granular cell tumor. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2003, 112, 388-391.
- Nakata M, Anno K, Matsumori L, [et al.]. Prenatal diagnosis of congenital epulis: a case report. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2002, 20, 627-629.
- Chan D, Lee C, Fung T, [et al.]. Ex utero intrapartum treatment (EXIT) for congenital giant ranula. *Acta Paediatr.* 2006, 95, 1303-1305.
- Preciado D, Rutter M, Greenberg J, [et al.]. Intrapartum management of severe fetal airway obstruction. *J Otolaryngol.* 2004, 33, 283-288.
- Kumar P, Kim HH, Zahrt G, [et al.]. Obstructive congenital epulis: prenatal diagnosis and perinatal management. *Laryngoscope.* 2002, 112, 1935-1939.
- López de Lacalle J, Aguirre I, Irizabal J, [et al.]. Congenital epulis: prenatal diagnosis by ultrasound. *Pediatr Radiol.* 2001, 31, 453-454.
- Kim E, Gross T. Prenatal ultrasound detection of a congenital epulis in a triple X female fetus: a case report. *Prenat Diagn.* 1999, 19, 774-776.
- Shipp T, Bromley B, Benacerraf B. The ultrasonographic appearance and outcome for fetuses with masses distorting the fetal face. *J Ultrasound Med.* 1995, 14, 673-678.
- Lulla C, Hegde A, Thakur P. Antenatal 3-dimensional sonographic diagnosis of fetal oropharyngeal teratoma. *J Clin Ultrasound.* 2008, 36, 305-307.
- Fotopoulou C, Toennies H, Guschmann M, [et al.]. Prenatal sonographic diagnosis of an oropharyngeal teratoma (epignathus) on a stillborn infant: a case report. *Z Geburtshilfe Neonatol.* 2007, 211, 165-168.
- Mittermayer C, Brugger P, Lee A, [et al.]. Prenatal magnetic resonance imaging as a useful adjunctive to ultrasound-enhanced diagnosis in case of a giant foetal tumour of the neck. *Ultraschall Med.* 2005, 26, 46-50.
- Clement K, Chamberlain P, Boyd P, [et al.]. Prenatal diagnosis of an epignathus: a case report and review of the literature. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2001, 18, 178-181.
- Papageorgiou C, Papatheanasiou K, Panidis D, [et al.]. Prenatal diagnosis of epignathus in the first half of pregnancy: a case report and review of the literature. *Clin Exp Obstet Gynecol.* 2000, 27, 67-68.
- Morof D, Levine D, Grable I, [et al.]. Oropharyngeal teratoma: prenatal diagnosis and assessment using sonography, MRI, and CT with management by ex utero intrapartum treatment procedure. *Am J Roentgenol.* 2004, 183, 493-496.
- Sajol S, Itil I, Ozsaran A, [et al.]. Prenatal sonographic detection of nasopharyngeal teratoma. *J Clin Ultrasound.* 1999, 27, 469-473.
- Levine A, Alvarez M, Wedgwood J, [et al.]. Contemporary management of a potentially lethal fetal anomaly: a successful perinatal approach to epignathus. *Obstet Gynecol.* 1990, 76, 962-966.
- Teal L, Angtuaco T, Jimenez J, [et al.]. Fetal teratomas: antenatal diagnosis and clinical management. *J Clin Ultrasound.* 1988, 16, 329-336.
- Awonuga A, Bell J, Vallecilla D, [et al.]. Antenatal diagnosis and perinatal management of extremely giant fetal cervicopharyngeal teratoma resulting in impossible fetal intubation: a case report. *Fetal Diagn Ther.* 2009, 25, 340-342.
- Carlan S, Angel J, Leo J, [et al.]. Cephalocele involving the oral cavity. *Obstet Gynecol.* 1990, 75, 494-496.
- Respondek-Liberska M, Janiak K, Jakubek A, [et al.]. Prenatal diagnosis of fetal face hemangioma in a case of Kasabach-Merritt syndrome. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2002, 19, 627-629.
- Vaikunth S, Morris L, Polzin W, [et al.]. Congenital high airway obstruction syndrome due to complete tracheal agenesis: an accident of nature with clues for tracheal development and lessons in management. *Fetal Diagn Ther.* 2009, 26, 93-97.
- Mikovic Z, Simic R, Egic A, [et al.]. Intrauterine treatment of large fetal neck lymphangioma with OK-432. *Fetal Diagn Ther.* 2009, 26, 102-106.
- Liechty K, Crombleholme T, Flake A, [et al.]. Intrapartum airway management for giant fetal neck masses: the EXIT (ex utero intrapartum treatment) procedure. *Am J Obstet Gynecol.* 1997, 177, 870-874.
- Cosmi E, Anceschi M, Cosmi E, [et al.]. Ultrasonographic patterns of fetal breathing movements in normal pregnancy. *Int J Gynaecol Obstet.* 2003, 80, 285-290.
- Kalache K, Chaoui R, Bollmann R. Doppler assessment of tracheal and nasal fluid flow during fetal breathing movements: preliminary observations. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 1997, 9, 257-261.
- Suzuki M, Saito H, Yanaihara T. Assessment of fetal nasal fluid flow by two-dimensional color Doppler ultrasonography during pregnancy. *J Matern Fetal Med.* 1999, 8, 159-163.
- Respondek-Liberska M, Papis A, Oszukowski P, [i wsp.]. Znaczenie badania echokardiograficznego w przepuklinie pępowinowej (Pp) u 83 płodów w materiale Zakładu Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych ICZMP i Uniwersytetu Medycznego w Łodzi w latach 1999-2006. *Ginekol Pol.* 2008, 79, 602-611.
- Foryś S, Wilczyński J, Oszukowski P, [i wsp.]. Agenezja nerek w materiale Zakładu Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych I „CZMP” z uwzględnieniem badań serca płodów w latach 1994-2002. *Ginekol Pol.* 2004, 74, 1083-1087.
- Grzesiak M, Respondek-Liberska M, Szaflik K, [i wsp.]. Zastawka cewki tylnej u płodu (PUV) w materiale Zakładu Diagnostyki i Profilaktyki Wad Wrodzonych Instytutu Centrum Zdrowia Matki Polki w latach 1994-2002 a wyniki badań echokardiograficznych. *Ginekol Pol.* 2004, 74, 1088-1092.