

# Frontiera ORL

Periodico di Otorinolaringologia, Patologia Cervico Facciale, Audiologia e Foniatria  
*Periodic of otolaryngology, cervico-facial pathology, audiology and speech therapy*



Rivista ufficiale della Società Campana ORL



Gruppo Otolaringologico Campano

Frontiera  
ORL

Periodico trimestrale  
rivolto alla classe medica  
*Quarterly magazine for medical class*

Direttore editoriale/Editor  
Ortensio Marotta

Coordinatore di redazione  
Editorial Coordinator  
Vito Marotta

Direttore responsabile/Editor chief  
Loredana Guida

**Hanno partecipato a questo numero**  
R. Menicagli, M. Duca, M. Iengo, A. Brunetti,  
A. Elefante, G. Caliendo, A. Caruso,  
A. M. Di Lullo, M. Cavaliere, N. Balica,  
S. Cotulbea, M. Poenaru, A. H. Marin,  
C. Doros, S. Lupescu, E. R. Boia, H. Stefanescu,  
G. Nicoletti, S. Scevola, A. Faga, E. Mevio,  
M. Sbrocca, M. Mullace, N. Mevio,  
L. Migliorini, Mohamed Wael Mustafa

Redazione/Editorial office  
Via Fuga, 64 - Caserta

Dialogo con i lettori/  
Dialogue with readers  
Ortensio Marotta  
ortensio.marotta@alice.it  
339.6681530

Direttore UOC di  
Otorinolaringoiatria,  
AORN "S. Anna e S. Sebastiano",  
Caserta

Realizzazione editoriale/Production  
  
guidalor@gmail.com  
328.3090442

Anno VII, N. 2  
ottobre/dicembre 2016  
Registrazione/Registered  
Tribunale di S. Maria Capua Vetere  
n°765 del 22/06/2010

Info: [www.frontieraorl.it](http://www.frontieraorl.it)  
[frontieraorl@gmail.com](mailto:frontieraorl@gmail.com)

## In questo numero...

<i>In this number...</i>	
Resezione tracheale preservando la precedente laringectomia sopracricoidica.	
Ruolo della palliazione chirurgica	
<i>Tracheal resection saving the previous supracricoid laryngectomy.</i>	
<i>The role of surgical palliation</i>	
S. Dallari, G. Zaraca, M. Giannini, D. Durso, L. Giustini ..... 3	
Case report:	
Impianto Cocleare in un paziente affetto da sindrome di Klippel-Trenaunay	
<i>Cochlear implant in Klippel-Trenaunay Syndrome: a case report</i>	
O. Marotta, F. Catapano, M. Cocchiarella, C. Crisci, C. Di Meo, V. Marotta ..... 0	
La dacriocistorinostomia endoscopica endonasale: nostra esperienza	
<i>Endonasal endoscopic dacryocystorhinostomy(DCR): our experience</i>	
M. Manola, L. Moscillo, A. Mastella, B. Ferrillo, G. Battiloro, D. Lacerenza ..... 0	
Un caso di localizzazione ORL di malattia di Lemierre	
<i>ENT Lemierre's disease</i>	
U. Pignatelli, L. Gentile, G.P. D'Addazio, P. Gamba, G. Licursi, U. Moz ..... 0	
Pseudotumor infiammatorio della ghiandola parotide: case report	
<i>Inflammatory pseudotumor of the parotid gland: a case report</i>	
A. Caranti, A. Cimatti ..... 0	

# Resezione tracheale preservando la precedente laringectomia sopracricoidea. Ruolo della palliazione chirurgica.

*Tracheal resection saving the previous supracricoid laryngectomy. The role of surgical palliation.*

S. Dallari<sup>1</sup>, G. Zaraca<sup>1</sup>, M. Giannini<sup>2</sup>, D. Durso<sup>1</sup>, L. Giustini<sup>3</sup>

<sup>1</sup> U.O.C. di Otorinolaringoiatria, Ospedale "A. Murri", Fermo (Italy)

<sup>2</sup> U.O.C. di Radioterapia, Ospedale "Santa Lucia", Macerata (Italy)

<sup>3</sup> U.O.C. di Oncologia Medica, Ospedale "A. Murri", Fermo (Italy)

## Abstract

Gli Autori presentano un caso di recidiva di neoplasia nella sede della pregressa tracheotomia dopo una riuscita laringectomia sopracricoidea per un carcinoma glottico persistente.

In ragione della giovane età del paziente e delle possibilità oncologiche locali, fu eseguita una resezione tracheale con anastomosi diretta, risparmiando la neolaringe che non era coinvolta.

Nell'opinione degli Autori, in giovani pazienti con cancro recidivo e conseguente prognosi sfavorevole, ogni sforzo dovrebbe essere fatto per ottenere la massima curabilità mantenendo allo stesso la migliore qualità della vita residua.

**Parole chiave:** recidiva di cancro, resezione tracheale, chirurgia palliativa.

## Introduzione

In pazienti con recidiva di tumore dopo trattamento e conseguente prognosi sfavorevole la cosa più importante è preservare una buona qualità della loro vita residua.

Un'ulteriore chirurgia, se indicatea, dovrebbe essere sia efficace che sicura così da minimizzare il carico chirurgico, ridurre il tempo di ospedalizzazione e assicurare risultati estetici e funzionali accettabili (1).

La resezione della trachea prossimale si è dimostrata procedura relativamente sicura (2).

Presentiamo qui un caso di recidiva di malattia nella sede della pregressa tracheotomia in un paziente già sottoposto a laringectomia sopracricoidea per un cancro laringeo ricorrente.

In accordo con la nostra filosofia in questi casi (3), scegliemmo ancora l'opzione chirurgica e realizzammo una resezione/anastomosi della trachea cervicale, risparmiando la laringe residua che era libera da malattia.

## Abstract

The Authors present a case of cancer recurrence at the tracheotomy site after a successful supracricoid laryngectomy for persistent glottic cancer.

Due to the patient young age and the local oncologic possibilities a tracheal resection with direct anastomosis was performed sparing the neolarynx which was not involved.

In Author's opinion in young patients with recurrent cancer and consequent poor prognosis every effort should be made to achieve the maximum of curative effect while preserving the best quality of the residual life.

**Key words:** cancer recurrence, tracheal resection, palliative surgery.

## Introduction

In patients with tumor regrowth after treatment and consequent poor prognosis the most important issue is to preserve a good quality of their residual life.

Further surgery, if indicated, should be both efficacious and safe in order to minimize the surgical burden, reduce the hospitalization time and assure acceptable aesthetic and functional results (1).

Upper tracheal resection has proved to be a relatively safe procedure (2).

We hereby present the case of a cancer recurrence in the site of the previous tracheotomy in a patient already undergone a supracricoid laryngectomy for relapsing laryngeal cancer.

According to our philosophy in such cases (3), we still chose a surgical option and performed a cervical tracheal resection/anastomosis sparing the free-of disease residual larynx.

## Case description

A 52 year old male was initially referred to us for a two-year lasting dysphonia with multiple nodular lesions on both

■ Indirizzo per corrispondenza / Address for correspondence: S. Dallari, MD - U.O.C. di Otorinolaringoiatria, Ospedale "A. Murri", Fermo (Italy)  
E-mail: dallarinew@libero.it



## Caso clinico

Un maschio di 52 anni si rivolse inizialmente a noi nel settembre 2013 per una disfonia che durava da due anni, con la presenza di multiple lesion nodulari su entrambe le corde vocali. (Fig. 1).

Inaspettatamente, l'istologia evidenziò un carcinoma squamocellulare infiltrante a carico della corda vocale destra e una displasia severa/carcinoma in situ a carico della corda vocale sinistra.

Una cordecomia destra tipo I, eseguita con laser CO<sub>2</sub> e due ulteriori procedure microlaringoscopiche non riuscirono a risolvere il problema.

Al paziente fu quindi offerta l'opzione della radioterapia o quella di una laringectomia subtotal e scelse quest'ultima.

Una crico-ioido-epiglottopessia con risparmio di entrambe le aritenoidi (OPHL tipo II), (4), e uno svuotamento laterocervicale bilaterale furono eseguiti nell'Aprile 2014.

Il decorso fu ottimale e il paziente recuperò rapidamente una voce accettabile e una buona deglutizione.

In ragione dell'indubbia aggressività della neoplasia e nonostante la negatività istologica di tutti i linfonodi asportati, fu eseguita una radioterapia sull'intero volume laringeo, terminate nel luglio 2014.

Nel febbraio 2015 un'ulcerazione cutanea con cellule neoplastiche maligne comparve nella cicatrice della pregressa tracheotomia (Fig. 2).

Sia l'opzione di un'ulteriore chirurgia che quella di una chemioterapia + (re)irradiazione furono discusse nel nostro board oncologico e, dopo un'approfondita discussione e informazione del paziente e dei suoi familiari, fu deciso di procedere ancora chirurgicamente.

L'operazione fu eseguita il 23 febbraio 2015.

Dopo la delimitazione di un'ampia area cutanea attorno alla recidiva, la tiroide fu asportata, identificando e risparmiando i nervi ricorrenti e svuotando ampiamente il VI livello, bilateralmente (linfonodi negativi).

Una volta scheletrizzato completamente l'asse laringotracheale, la trachea fu sezionata superiormente fra primo e secondo anello e inferiormente fra sesto e settimo anello. Fu quindi aperta verticalmente lungo la giunzione cartilagineo-mucosa di destra e l'estensione interna del tumore valutata (Fig. 3).

A questo punto la possibilità di risparmiare la laringe apparve possibile.

Si procedette dunque ad asportare il tratto di trachea isolato e a confezionare un'anastomosi termino-terminale.

Alla fine dell'intervento un tutore da ginocchio, malleabile, fu adattato all'occipite, al collo e alle spalle del paziente in modo da farlo rimanere con la testa flessa in avanti di circa 30°.

Il paziente fu quindi ricoverato in terapia intensiva ed estubato dopo 20 ore.

Il decorso operatorio fu privo di complicazioni. Per 8 giorni il paziente indossò il tutore e fu dimesso in 12° giornata post-operatoria.



*Fig. 1: Aspetto della laringe alla prima visita.*

*Fig. 1: Laryngeal picture at the first visit.*



*Fig. 2: Recidiva di tumore nella sede della precedente tracheotomia.*

*Fig. 2: Cancer recurrence on the site of the previous tracheotomy.*

vocal cords (September 2013, Fig 1). Surprisingly, histology revealed infiltrating squamous cell carcinoma on the right vocal fold and severe dysplasia/in situ carcinoma on the left vocal fold.

A type I right CO<sub>2</sub> laser cordecomia and two more microlaryngoscopic procedures failed to fix the problem.

The patient was then offered both the option of radiotherapy and a subtotal laryngectomy and he chose the latter.

A crico-hyoid-epiglottopexy with both arytenoids spared (OPHL type),(4) and bilateral neck dissection was performed (April 2014). The patient did well with quick recuperation of a substantially normal swallowing and a serviceable voice. Because of the undoubtedly aggressiveness of the tumor and despite the negativity of all the excised lymphnodes, postoperative radiation therapy on the whole laryngeal volume was performed too, ended in July 2014.

In February 2015 an ulceration with malignant squamous cells appeared in the scar of the previous tracheotomy (Fig. 2).

Both further surgery and chemo-(re)radiation were discussed



Dopo l'intervento il paziente fu trattato con chemioterapia e radioterapia concomitante su letto chirurgico, collo e mediastino superior, bilateralmente.

Le sue condizioni furono sempre buone e condusse una vita sostanzialmente normale, sottponendosi a uno stretto follow-up, fino al febbraio 2016, quando un'ulcera cutanea apparve alla base destra del collo.

La biopsia evidenziò cellule maligne squamose.

Al controllo endoscopico la neo-laringe appariva libera da malattia e la trachea ben cicatrizzata, con un calibro normale (Fig. 4).

Il caso fu riesaminato a livello di tumor board e si concluse che non vi era più spazio chirurgico. Si decise quindi per un saggio di chemioterapia (Taxolo + Carboplatin), dopo consulto con il paziente e i suoi familiari.

La risposta clinica fu buona e la lesione non guarì completamente ma rimase stabile per alcuni mesi per poi riprendere ad evolvere molto lentamente.

Il paziente ancora conduce una vita abbastanza normale e accede ai nostri ambulatori due volte alla settimana, per medicazione, mentre segue un programma di chemioterapia palliativa presso il Reparto di Oncologia Medica.

### Conclusioni

Desideriamo focalizzarci sulla biologia di questo tumore. Presente da due anni come leggera disfonia, paziente ex fumatore da oltre vent' anni, aspetto laringoscopico non particolarmente sospetto, istologia di tumore squamocellulare e displasia severa.

Ripetute procedure microlaringoscopiche e una cordecomia-laser non sono riuscite a controllare il problema e, stando a quanto riportato da Huang e Co. (5), potrebbero aver addirittura peggiorato le probabilità di sopravvivenza.

Ciò nondimeno, una laringectomia sub-totale è riuscita a bloccare la patologia a livello laringeo, come già riportato in letteratura (6).

La recidiva si è verificata nella sede della pregressa tracheotomia, nonostante una tecnica chirurgica meticolosa (non abbiamo avuto alcuna recidiva peristomiale negli ultimi dieci anni) a la radioterapia post-operatoria che,



Fig. 3: Parete anteriore della trachea aperta con recidiva del tumore.

Fig. 3: Anterior tracheal wall opened with cancer recurrence.



Fig. 4: Tredici mesi dopo resezione tracheale: a) neo-laringe funzionante; b) lume tracheale nella sede dell'anastomosi.

Fig. 4: Thirteen months after tracheal resection: a) functioning neolarynx; b) tracheal lumen at the site of the anastomosis.

in our oncologic board and after a detailed counselling with the patient and his family a surgical approach was decided.

The operation was performed on February 23rd, 2015.

After the delimitation of a wide squared skin paddle including the tumour recurrence, the thyroid was excised with identification and conservation of the recurrent nerves. A careful dissection of the VI level was also performed, on both sides (post-operative histology negative). As the laryngotracheal axis was fully skeletonized, the trachea was sectioned superiorly between the first and second ring and inferiorly between the sixth and seventh ring. It was then opened vertically along the right cartilaginous-membranaceous junction and the internal extension of the tumor evaluated (Fig. 3).

At this point the possibility of sparing the larynx appeared to be feasible.

Tracheal excision was then accomplished and a termino-terminal anastomosis performed.

At the end of the procedure a pre-mold knee splint was bent and adapted to the patient's occiput, neck and back to force the head in a 30° anteriorly flexed position.

Then the patient was transferred to the intensive care unit where was awaked and extubated after 20 hours.

The post-operative period was uneventful. For 8 days the patient wore the tutor and was discharged on the 12th post-operative day.

After the operation the patient underwent a concomitant chemotherapy and radiotherapy on the surgical bed, anterior cervical skin, bilateral neck and upper mediastinum.

He did well and was back to a substantially normal life, while undergoing a strict follow-up, until February 2016 when a cutaneous ulcer appeared in the right neck, laterally and inferiorly to the laryngeal region.

Squamous malignant cells were detected at biopsy.

An endoscopic examination showed the neo-larynx persistently free of disease and a well healed trachea with a grossly normal caliper (Fig. 4).

We reviewed the case at the tumor board and surgery was considered no more feasible.

An essay of chemotherapy (Taxol + Carboplatin) was decided, after counselling the patient and his relatives. The clinical response was good and the lesion did not heal but remained unchanged for several months then started to progress very slowly. The patient still leads a grossly normal life and comes to our



fortunatamente, non è riuscita a evitare una ricrescita del tumore o l'insemenzamento di cellule neoplastiche.

Ognuno ricorda i propri casi di cancro glottico che hanno recidivato e hanno condotto la gran parte dei pazienti a morte, nonostante trattamenti aggressivi, ripetuti e multimodali.

Trovatici di fronte a una recidiva cutanea con permeazione tracheale, di nuovo, stante la giovane età del paziente, un trattamento conservativo fu intrapreso e la neo-laringe, libera da malattia e ben funzionante, potè essere risparmiata.

Una laringectomia totale, infatti, avrebbe peggiorato significativamente la qualità di vita del paziente senza migliorarne la prognosi.

La chirurgia di salvataggio con resezione/anastomosi tracheale si è rivelata fattibile senza complicazioni anche dopo radioterapia che, tra l'altro, si poté ancora aggiungere sul letto chirurgico e sui livelli linfatici cervicali e mediastinici, senza purtroppo riuscire ad evitare un'ulteriore recidiva cutanea, non più trattabile chirurgicamente.

In conclusione, la palliazione chirurgica è ancora un'opzione molto impegnativa, sia per la scelta decisionale che per l'individuazione della tecnica più appropriata da adottare.

In pazienti giovani, con cancro recidivante e prognosi sfavorevole, ogni sforzo deve essere fatto per bilanciare l'efficacia terapeutica e la preservazione della miglior qualità di vita possibile.

La ricerca del miglior trattamento fra quelli più sicuri e rapidi, un'informazione dettagliata ed esauriente e l'applicazione scrupolosa di tutti i dettagli medici e chirurgici sono le chiavi di successo di questa filosofia.

## Bibliografia - References

1. Shaw HJ. Palliation in head and neck cancer. J Laryngol Otol 1985 (99): 1131-42.
2. Mueller DK. Tracheal Resection. Medscape, Sep 15, 2015
3. 4. Dallari S, Giannini M, Bonetti MG, Giustini L, Principi P. Salvage surgery in head and neck patients. Personal experience and case report. Submitted to International Journal of Head and Neck Surgery
4. Rizzotto G, Crosetti E, Lucioni M, Succo G. Subtotal laryngectomy: outcomes of 469 patients and proposal of a comprehensive and simplified classification of surgical procedures. Eur Arch Otorhinolaryngol. 2012 Jun;269(6):1635-46.
5. Huang J1, Yu Z, Fang J, Chen X, Chen X, Huang Z. Salvage transoral laser microsurgery for early recurrent glottic carcinoma after primary laser treatment. Acta Otolaryngol. 2013 May;133(5):531-7.
6. Lucioni M, Bertolin A, Lionello M, Giacomelli L, Rizzotto G, Marioni G. Open partial horizontal laryngectomy for salvage after failure of CO<sub>2</sub> laser-assisted surgery for glottic carcinoma. Eur Arch Otorhinolaryngol 2016;273:169-75.

*outpatient clinic twice a week for medication while follows a palliative chemotherapy program at the Medical Oncology Department.*

## Conclusions

*We wish to focus on the biological behaviour of the laryngeal pathology in this case.*

*Clinically present as a two-year lasting dysphonia, smoking discontinued since more than twenty years, indirect telelaryngoscopic aspect of not clearly malignant neoplasm, histology of squamous cell carcinoma and severe dysplasia.*

*Repeated endoscopic procedures and a CO<sub>2</sub> laser cordectomy failed to fix the problem and might have worsened the survival rate, as stated by Huang and Co. (5).*

*Nevertheless a subtotal laryngectomy proved to stop the pathology at the laryngeal level, as already confirmed in the literature (6).*

*The recurrence took place at the site of the previous tracheotomy, despite a meticulous surgical technique (no stomal recurrences in the last ten years) and the post-operative radiation therapy which unfortunately failed to prevent further regrowth and/or tumor cell seeding.*

*Everyone remembers his own cases of laryngeal (glottic) cancer which showed a tendency to recur and most of the time led patients to death despite aggressive, repeated and multimodality treatment.*

*When we had to deal with a cutaneous recurrence with tracheal permeation, again, because of the patient's young age, conservative treatment was undergone and the free-of-disease and well functioning residual larynx could be spared.*

*Performing a total laryngectomy, in fact, would severely affect patient's quality of life without adding significant prognostic improvement.*

*Salvage surgery with tracheal resection/anastomosis turned out to be feasible without complications even after radiation therapy which, by the way, could be added on the site of the recurrence and on the cervico-mediastinal lymphatic level but, again, could not avoid a further and not more radically treatable cutaneous recurrence.*

*In conclusion, surgical palliation is still a challenging task, both for the decision making and for the choice of the most appropriate technique to adopt.*

*In young patients with recurrent cancer disease and poor prognosis every effort should be made in order to balance therapeutic efficacy and quality of life preservation.*

*Search for the best treatment among the safest and quickest ones, detailed and thorough counseling and judicious application of all surgical and medical details are the keys of such philosophy.*

**Gli Autori dichiarano nessun conflitto d'interessi**  
*The Authors declare no conflict of interest*

# Case report: Impianto Cocleare in un paziente affetto da sindrome di Klippel-Trenaunay

*Cochlear implant in Klippel-Trenaunay Syndrome: a case report*

O. Marotta, F. Catapano, V. Marotta

*UOC di Otorinolaringoiatria, Azienda Ospedaliera di Rilievo Nazionale e di Alta Specializzazione di Caserta*

*Direttore: Dr. Ortensio Marotta*

## Abstract

La sindrome di Klippel-Trenaunay (KTS) è una rara patologia congenita caratterizzata da malformazioni dei capillari (port-wine stains o emangiomi piatti), ipertrofia del tessuto molle e dell'osso, ampie vene varicose. Le malformazioni vascolari intracraniche sono molto rare. Gli Autori riportano il caso di una bambina di 4 anni con KTS, affetta da ipoacusia neurosensoriale profonda in orecchio sinistro e grave in quello destro, che fu sottoposta ad impianto cocleare presso la nostra struttura; nel nostro caso l'osso temporale era sede di formazioni angiomatose ed una di queste interessava la porzione verticale del n. facciale.

## Introduzione

La sindrome di Klippel-Trenaunay (KTS) fu descritta originariamente da Maurice Klippel e Paul Trenaunay nel 1900 (1). Essa è una rara sindrome angio-osteopertrofica caratterizzata dalla triade sintomatologica: malformazioni dei capillari (port-wine stains o emangiomi piatti), ipertrofia del tessuto molle e dell'osso, ampie vene varicose (2). Di solito coinvolge un arto inferiore, raramente coinvolge più arti, il tronco, il volto o il corpo intero. Sono molto rari i casi di angiomi intracranici associati con KTS. Viene definita Sindrome di Klippel-Trenaunay-Weber se sono presenti anche fistole artero-venose (3). Sono molto rari i casi di angiomi intracranici associati con KTS (4, 5, 6).

L'incidenza è bassa (1/27500 nascite). L'eziologia è sconosciuta. La malattia è congenita ed è dovuta ad una disfunzione dei meccanismi di angiogenesi e vasculogenesi nei siti interessati (7). Solo pochi casi in letteratura sono riportati di KTS associata a una perdita uditiva. In un lavoro del 2004 di Suver (8) si fa cenno a due casi: uno con ipoacusia neurosensoriale e uno con ipoacusia mista in una adolescente con fistole artero-venose causanti un iperaccrescimento dell'osso che si estendeva dalla coclea

## Abstract

*Klippel-Trenaunay syndrome (KTS) is a rare congenital disorder characterized by capillary malformations (port-wine stains or flat hemangiomas), soft tissue and bone hypertrophy, large varicose veins. Intracranial vascular malformations are very rare. The Authors report a case of a 4 year old girl with KTS, suffering from anacusis in the left ear and severe sensorineural hearing loss in the right ear, who underwent cochlear implantation; in our case angiomatous formations were located inside the temporal bone, one of these adherent to the vertical portion of the facial nerve.*

## Introduction

*In 1900 Maurice Klippel and Paul Trenaunay were the first to describe a rare angio-osteopertrofica syndrome characterized by symptom triad: capillary malformations (port-wine stains or flat hemangiomas), soft tissue and bone hypertrophy, large varicose veins (1, 2). It typically affects one lower limb, rarely more limbs, the trunk, the face or the whole body. Cases of intracranial angioma associated with KTS are very rare. Klippel-Trenaunay-Weber syndrome or Parkes-Weber syndrome is accepted as a separate entity consisting of the triad of Klippel-Trenaunay syndrome accompanied by a clinically apparent arteriovenous fistula (3). Intracranial angioma associated with KTS are extremely uncommon (4, 5, 6).*

*The incidence is low (1/27500 births). The etiology is unknown. The disease is congenital and is due to a dysfunction of angiogenesis and vasculogenesis mechanisms of the affected sites(7). Few cases of KTS associated with hearing loss are reported in literature. In a report of Suver (8) mentions two cases: the first with sensorineural hearing loss, and the second with mixed hearing loss in a teenager with arteriovenous fistulas causing an overgrowth of bone that extended from the cochlea into the cavity of middle ear. In both cases, the typical malformation of KTS concerned the face; for this reason, the Author suggested to perform an audiological evaluation in patients with KTS interesting head.*

■ Indirizzo per corrispondenza / Address for correspondence: O. Marotta - Azienda Ospedaliera "Sant'Anna e San Sebastiano", Caserta - U.O.C. di Otorinolaringoiatria - E-mail: ortensio.marotta@alice.it



Fig. 1: Angioma sul volto e sclere blu.

Fig. 1: Angioma on face and blue sclera.

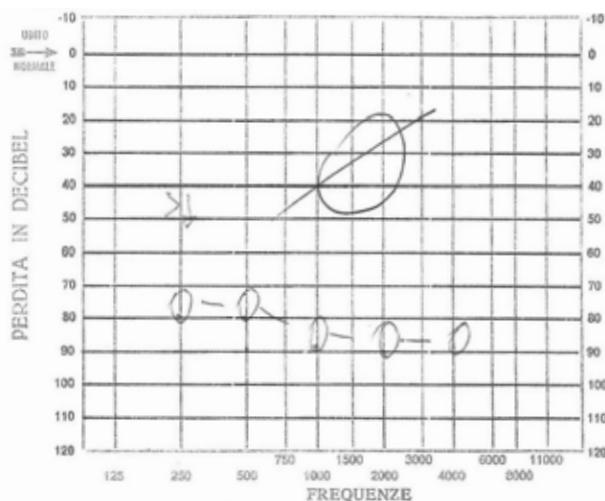


Fig. 3: Esame audiometrico.

Fig. 3: Audiometric examination.



Fig. 2: Angioma sull'orecchio e collo.

Fig. 2: Angioma on ear and neck.

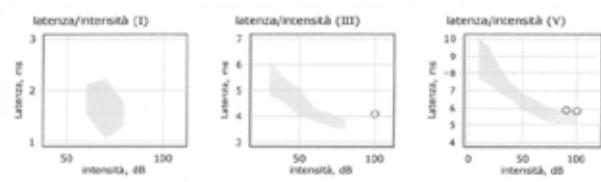
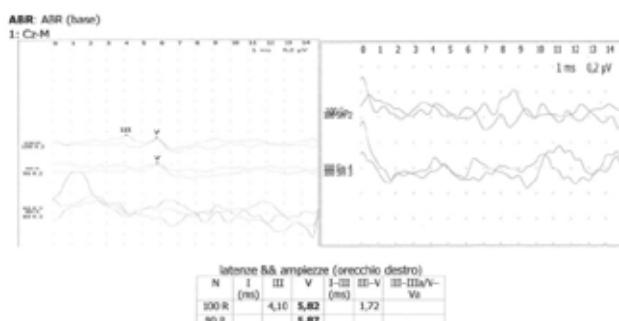


Fig. 4: A.B.R.



Fig. 5: T.C.

Fig. 5: C.T.

The authors have not found data in the literature concerning the cochlear implantation in patients with KTS.

#### Clinical Case

C. G. of 4 years presented to our observation for hearing loss with language delay.

The parents reported that was diagnosed a KTS in the ne-



fin dentro la cavità dell'orecchio medio. In entrambi i casi le tipiche malformazione della KTS riguardavano il volto; ciò suggeriva, secondo l'autore, la necessità di eseguire una valutazione audiologica nei pazienti affetti da KTS interessante la testa.

Gli Autori non hanno trovato in letteratura dati concernenti l'applicazione di impianto cocleare in pazienti affetti da KTS.

### Caso clinico

Noi riportiamo il caso di una paziente, C. G. di anni 3, venuta alla nostra osservazione per ipoacusia con ritardo del linguaggio.

All'anamnesi, i genitori riferivano che, in età neonatale, fu diagnosticata una KTS ed, in seguito a valutazione audiologica, le fu riscontrata sordità bilaterale, per cui, all'età di 5 mesi, la bimba fu sottoposta a protesizzazione bilateralemente e avviata a riabilitazione logopedica. A tre anni subì intervento di adenoidectomia e drenaggio transtimpanico bilaterale.

Nonostante la terapia logopedica, a 4 anni, la paziente presentava un evidente ritardo del linguaggio. Per tale motivo viene alla nostra osservazione e sottoposta a valutazione per impianto cocleare.

All'esame obiettivo, la paziente presentava un voluminoso angioma sul volto e sull'orecchio, collo e spalla sinistra; sclere di colore bluastro (fig. 1 e 2)

Alla orofaringoscopia era evidente una asimmetria tonsillare con la tonsilla sinistra più voluminosa della destra. Le membrane timpaniche erano integre con iperemia della sinistra.

Fu sottoposta, come tutti i pazienti candidati ad applicazione di I.C. presso la nostra U.O., ad un protocollo di valutazione preoperatorio che comprende: colloquio, anamnesi e visita ORL, valutazione audiologica, valutazione logopedica, valutazione psicologica, valutazione neurologica – neurochirurgica, valutazione neuropsichiatrica, esami di laboratorio, valutazione cardiologica, radiografia del torace, T.C. rocche petrose, R.M. encefalo, visita anestesiologica.

La valutazione audiologica rivelò anacusia sx ed ipoacusia neurosensoriale grave-profonda a dx (fig. 3).

L'esame dei potenziali evocati uditivi (ABR) evidenziò assenza di onde significative in orecchio sinistro; la quinta onda era presente fino a 90dB in orecchio destro (fig. 4). Alla valutazione logopedica presentava un ritardo del

*onatal age and the audiological evaluation detected bilateral deafness, so C.G. underwent bilateral prosthesis at the age of five months and started speech therapy rehabilitation. At three years aged underwent adenoidectomy and bilateral transtympanic drainage.*

*Despite speech therapy the patient had a noticeable language delay. For this reason she presented to our observation and we decided to perform an evaluation for cochlear implant.*

*At physical examination, the patient had a voluminous angioma on the face and ear; neck and left shoulder; bilateral blue sclera (fig. 1 and 2).*

*At orofaringoscopy was evident tonsillar asymmetry with the left tonsil more voluminous than the right. The tympanic membranes were intact with hyperemia of the left.*

*Like all patients scheduled for cochlear implantation in our department, it was applied a preoperative protocol that determines the candidacy for a cochlear implant. It includes: interview, medical history and ENT examination, audiological evaluation, speech therapy evaluation, psychological evaluation, neurological - neurosurgery evaluation, neuropsychiatric evaluation, laboratory tests, cardiological evaluation, chest x-ray, high-resolution CT scanning of the temporal bone, brain M.R. I, anesthetic visit.*

*The audiological evaluation revealed left anacusis and severe-profound sensorineural hearing loss on the right (fig. 3).*

*The auditory brainstem response (ABR) highlighted the absence of significant waves in left ear; the fifth wave was present up to 90dB in right ear (Fig. 4). The speech therapy evaluation detected a language delay.*

*Computed tomography (CT) bilaterally showed a normal cochlea and likely presence of inflammatory tissue in left mastoid (fig. 5). The MRI highlighted a hemihypertrophy of brain tissue, in particular the white matter, combined to normal morphology of the labyrinthine structures (Fig. 6).*

### Surgery

*The authors decided to perform cochlear implant surgery on the left ear. The preoperative anesthesia evaluation was very accurate to avoiding hemodynamic complications. The patient was evaluated ASA II.*

*After incision behind the ear, a mastoidectomy was made. The presence of reddish gelatinous tissue that almost totally occupied the mastoid cells was highlighted. It extended in the antrum and occluded epytympanum partially englobing the ossicular chain.*

*While executing posterior tympanotomy, a great angiomatic formation was found that enveloped a piece of the vertical*

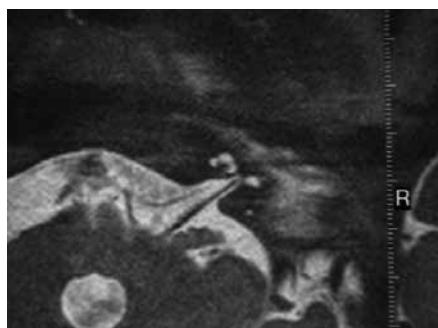
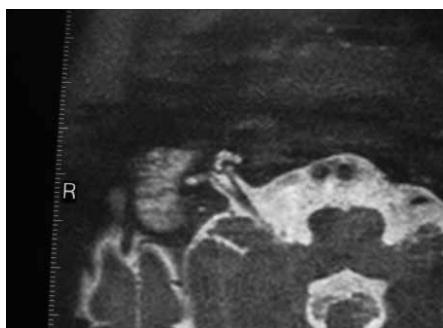
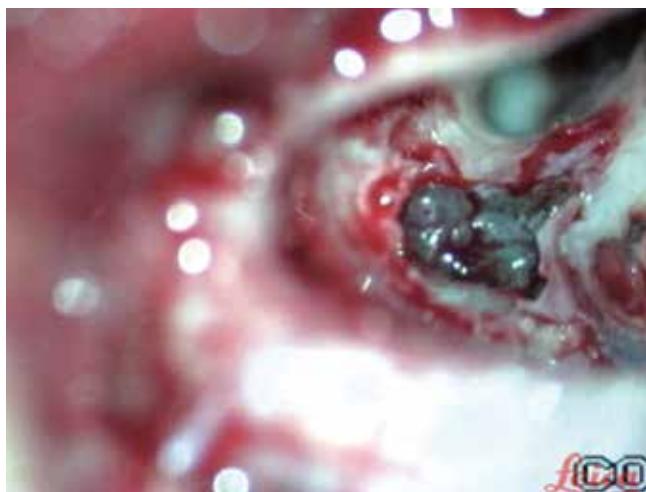


Fig. 6: R.M.

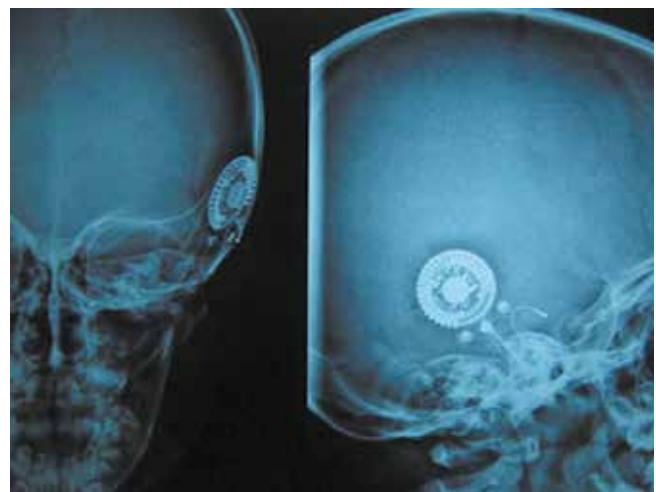
Fig. 6: M.R.I.





*Fig. 7: Reperto intraoperatorio: formazione angiomatoso.*

*Fig. 7: Intraoperative finding: angiomaticous formation.*



*Fig. 9: ARX cranio postoperatoria.*

*Fig. 9: Modified Stenvers view of CI.*



*Fig. 8: Asportazione della formazione angiomatoso con esposizione del nervo facciale.*

*Fig. 8: Removal of angiomas training to expose the facial nerve.*

linguaggio.

La tomografia computerizzata (TC) mostrò una coclea normoconformata bilateralmente e presenza di tessuto simil infiammatorio mastoideo (fig. 5). La risonanza magnetica nucleare (RM), oltre alla normale conformazione delle strutture labirintiche, evidenziò una emiipertrofia del tessuto cerebrale, in particolare della sostanza bianca (fig. 6).

### Intervento

Gli Autori decisero di sottoporre la ragazza ad intervento chirurgico di impianto cocleare a sinistra. La valutazione anestesiologica fu molto accurata e mirata a evitare soprattutto eventuali complicanze emodinamiche; la paziente fu valutata ASA II.

Fu effettuata una mastoidectomia “a minima”. Si evidenziò la presenza di tessuto gelatinoso rossastro che occupava pressoché totalmente le cellette mastoidee e che, estendendosi attraverso l’antro, andava ad occludere l’epitimpano ed inglobare parzialmente la catena ossicolare.

Nell’eseguire la timpanotomia posteriore fu riscontrata la presenza di un grosso vaso che avvolgeva per un tratto di 5 mm la porzione verticale del nervo facciale (fig. 7).

Si procedette a coagulazione con pinza bipolare della formazione angiomatica e alla sua rimozione, tenendo cura di non provocare lesioni del nervo; fu così possibile completare la timpanotomia posteriore (fig. 8).

portion of the facial nerve long 5 mm (Fig. 7).

Bipolar coagulation was used to cauterize and remove the angiomaticous formation, taking care to preserve the nerve; so it was possible to complete the posterior tympanotomy (Fig. 8).

Once the middle ear space was exposed, a anterior-inferior to the round window cochleostomy was made and the implant electrodes (ME, multi -electrodes) was inserted. The receiver/stimulator (RS) was then placed. The neural response telemetry and stapedial reflex, used to assess CI, gave a positive result.

The postoperative course was regular. The first postoperative day was performed xray, modified Stenvers view, to demonstrate the correct ME placement (fig. 9).

During second postoperative day the patient was discharged. The CI was activated after one month. Subsequently C.G. underwent periodic controls and speech therapy.

### Discussion

KTS is a rarely associated with hearing disorders (1, 2, 8). The presence of obvious head and neck involvement, like in this case with extensive cutaneous angiomatosis and macrocrania, always requires conducting hearing screening (8).

An accurate neuroradiological study is necessary to perform cochlear implantation in a patient with KTS. Although the neurovascular anomalies are rare in KTS, it could avoid serious complications related to the presence of cerebral arteriovenous malformations (4, 5, 6).

The role of CT and MRI is crucial to highlight any vas-



Fu posizionato il ricevitore stimolatore (RS) e, dopo aver effettuato la cocleostomia antero-inferiormente alla finestra rotonda, inserito il multielettrodo (ME) nella coelea. Quindi, si praticarono le prove di telemetria e il riflesso stapediale, che diedero esito positivo.

Il decorso postoperatorio fu regolare. Il giorno successivo all'intervento fu eseguita RX della rocca petrosa, in proiezione di Stenvers modificata, che confermò il corretto posizionamento del ME (fig. 9).

Quindi, la paziente fu dimessa. Circa un mese dopo l'intervento fu attivato l'IC. Seguirono controlli audiometrici periodici e trattamento logopedico.

## Discussione

La KTS è una sindrome raramente associata a disturbi uditivi (1, 2, 8). La presenza di coinvolgimento del distretto cervico facciale, evidente in casi come il nostro con una estesa angiomasosi cutanea e macrocrania, richiede sempre un approfondimento audiologico (8).

In caso di applicazione di IC in un paziente affetto da KTS è necessario praticare un accurato studio neuro-radiologico. Infatti, pur se rare le lesioni neurovascolari nella KTS, esso può evitare eventuali gravi complicazioni legate alla presenza di malformazioni artero-venose cerebrali (4, 5, 6).

Risulta cruciale il ruolo della TC e RM, alfine di evidenziare eventuali malformazioni vascolari interessanti la rocca petrosa. In particolare, dovrebbe essere eseguita una RM con mezzo di contrasto (Gadolino), che però non fu praticato nel nostro caso.

Come descritto in letteratura (9, 10), anche nella nostra paziente, dalla RM dell'encefalo si evidenzia' una chiara asimmetria degli emisferi cerebrali; in particolare, appare aumentato lo spessore della sostanza bianca omolaterale alle lesioni angiomatiche. La prevalenza di emiipertrofia cerebrale, nel campione di 11 pazienti con KTS dello studio esaminato, fu del 18%; nessuno di tali pazienti aveva malformazioni vascolari intracraniche (9).

Il tessuto angiomatico ipertrofico mastoideo non ha impedito la corretta esecuzione dell'intervento. La sua rimozione non ha causato lesioni del nervo facciale e a distanza di sei mesi dall'intervento l'impianto funziona correttamente con conseguente notevole miglioramento del linguaggio.

*cular malformations affecting petrous bone. MRI with Gadolinium should be performed (), which, however, was not done in our case.*

*The MRI demonstrated clear asymmetry of the cerebral hemispheres, finding described in literature (9, 10), resulting an increased thickness of the white matter ipsilateral to angiomatic formations. The prevalence of cerebral hemihypertrophy, in the series of 11 patients with KTS of the study, was 18%; no patient had an intracranial vascular malformation (9).*

*The mastoid angiomatic formation did not prevent the correct execution of the operation. The formation was removed preserving the facial nerve, and six months after surgery CI works properly with considerable improvement of language.*

## Bibliografia - References

1. Klipple M, Trenaunay P. Du naevus variqueux osteohypertrophique. Arch Gen Med. 1900;3:641–72
2. Cohen, M. M. (2000), Klippel-Trenaunay syndrome. Am. J. Med. Genet., 93: 171–175.
3. Lamar L. M., Farber G. A., O' Quinn S. E. Klippel-Trenaunay-Weber syndrome. Arch. Dermatol. 1965;91:58–58.
4. Sadiq MF, Shuaib W. Klippel-Trenaunay syndrome with intracranial arteriovenous malformation: a rare presentation. Case Rep Radiol. 2014;2014:20216
5. Makiyama Y, Nishimoto H, Fukaya C, Tsubokawa. Massive intracerebral hematoma in a child with Klippel-Trenaunay syndrome. Surg Neurol. 1994 Nov;42(5):392-5; discussion 395-6
6. Fierek O, Laskawi R, Kunze E. Large intraosseous hemangioma of the temporal bone in a child. Ann Otol Rhinol Laryngol. 2004 May;113(5):394-8
7. Oduber CE1, van der Horst CM, Hennekam RC. Klippel-Trenaunay syndrome: diagnostic criteria and hypothesis on etiology. Ann Plast Surg. 2008 Feb;60(2):217-23
8. Suver DW1, Perkins J, Manning SC. Klippel-Trenaunay-Weber syndrome with labyrinthine bony overgrowth and mixed hearing loss, a case report. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2004 Aug;68(8):1075-9.
9. Torregrosa A, Martí-Bonmatí L, V Higueras, Poyatos C, Sanchís a. Klippel-Trenaunay syndrome: frequency of cerebral and cerebellar hemihypertrophy on MRI. Neuroradiology. 2000 Jun; 42 (6): 420-3.
10. Hossein Esmailzadeh, Azita Tavassoli, Younes Jahangiri N, Nasibeh Vatankhah, Klippel-Trenaunay-Weber Syndrome with Hemimegalencephaly; Report of a Pediatric Case Iran J Pediatr. 2012 Mar; 22(1): 147–151.



Numero Verde  
**800.333.902**

info@acusticacampana.it  
www.acusticacampana.it

## Tenere sotto controllo il proprio udito è importante!

Grazie ad un semplice gesto puoi renderti conto della tua condizione e intervenire tempestivamente se necessario.

ANGRI • AVELLINO • BENEVENTO • CASERTA • CASORIA • CASTELLAMMARE DI STABIA • CAVA DE' TIRRENI  
• NAPOLI • NOLA • PESCO SANITA • PIEDIMONTE MATESE • SALERNO • S. MARIA CAPUA VETERE



# La dacriocistorinostomia endoscopica endonasale: nostra esperienza

*Endonasal endoscopic dacryocystorhinostomy(DCR): our experience*

M. Manola<sup>1</sup>, L. Moscillo<sup>2</sup>, A. Mastella<sup>2</sup>, B. Ferrillo<sup>2</sup>, G. Battiloro<sup>3</sup>, D. Lacerenza<sup>3</sup>

<sup>1</sup> SC Interaziendale di Otorinolaringoiatria e Chirurgia Oncologica Maxillofaciale – ASP – CROB - Basilicata

<sup>2</sup> UOC di ORL, Ospedale “S. Maria delle Grazie”, Pozzuoli (NA), ASL NA2 NORD

<sup>3</sup> SC Interaziendale di Oculistica – ASP - San Carlo – Basilicata

## Abstract

**Introduzione:** L'ostruzione cronica del dotto naso-lacrimal porta a infiammazione o infezione del sacco lacrimale (dacriocistite). Lo scopo di questo studio è stato quello di valutare i risultati clinici di 128 dacriocistorinostomie endoscopiche in 108 pazienti con epifora o dacriocistite.

**Metodi:** 108 pazienti con ostruzione del dotto naso-lacrimal sono stati reclutati per lo studio (F / M Rapporto: 5: 1, età media: 55 anni). I criteri di esclusione sono stati l'ostruzione pre-Saccale e la presenza di neoformazioni nei seni paranasali. La lunghezza minima del follow-up è stata di 12 mesi. Tutte le procedure sono state eseguite da un otorinolaringoatra e da un oftalmologo.

**Risultati:** La rimozione dei tubicini in silicone è stato completato, in media, entro 35 giorni dall'intervento. 44 pazienti sono stati sottoposti ad una chirurgia nasale associata a dacriocistorinostomia endonasale (36 settoplastiche, 8 FESS). Dopo 12 mesi, la risoluzione della sintomatologia è stata osservata in 116 su 128 interventi.

**Conclusioni:** i risultati degli Autori, in accordo con i dati della letteratura, indicano che la dacriocistorinostomia endoscopica endonasale è una tecnica chirurgica promettente, sia in termini di risultati e di morbilità postoperatoria.

**Parole-chiave:** dacriocistorinostomia, ostruzione del dotto naso-lacrimal, epifora, dacriocistite

## Introduzione

La dacriocistorinostomia endonasale (DCR) è stata descritta da Caldwell (1) nel 1893; tuttavia, a quel tempo, l'uso di tale tecnica era limitato a causa della scarsa visibilità del campo operatorio. Undici anni dopo, Toti (2) ha descritto la DCR per via esterna. Questa procedura è stata modificata nel corso degli anni, pur rimanendo il gold standard per il trattamento dell'ostruzione del dotto nasolacrimal (NLD).

L'ostruzione cronica del dotto naso-lacrimal, secondaria ad infiammazione cronica, porta a flogosi o infezione del sacco lacrimale (dacriocistite). Il sintomo principale è

## Abstract

**Introduction:** Chronic obstruction of the nasolacrimal duct leads to inflammation or infection of the lacrimal sac (dacryocystitis). The aim of the present study was to evaluate the clinical outcome of 128 endonasal endoscopic dacryocystorhinostomy in 108 patients with epiphora or dacryocystitis.

**Methods:** 108 patients with nasolacrimal duct obstruction were recruited for the study (F/M ratio: 5:1, mean age: 55 years). Exclusion criteria were pre-saccal obstruction and malignancy in the paranasal sinuses. The minimum length of follow up was 12 months. All the procedures were performed by one otolaryngologist and one ophthalmologist.

**Results:** The silicone tube removal was completed, on average, in 35 postoperative days. 44 patients had nasal surgery associated with endonasal dacryocystorhinostomy (36 septoplasty and 8 Endoscopic Sinus Surgery- ESS). After 12 months, symptomatic success was observed in 116 out of 128 eyes.

**Conclusions:** Authors' findings, according to literature data, indicate that the classic endonasal endoscopic dacryocystorhinostomy is a promising surgical technique both in terms of results and of postoperative morbidity.

**Key-Words:** dacryocystorhinostomy, endoscopy, nasolacrimal duct obstruction, epiphora, dacryocystitis

## Introduction

Endonasal dacryocystorhinostomy (DCR) was first described by Caldwell 1 in 1893; however, at that time the use of this technique was limited due to poor vision of the surgical field. Eleven years later, Toti 2 described the external DCR. This procedure has been modified over the years but it remains the gold standard for the treatment of nasolacrimal duct obstruction (NLD).

Chronic obstruction of the nasolacrimal duct secondary to chronic inflammation leads to inflammation or infection of the lacrimal sac (dacryocystitis). The main symptom is epiphora, but the conjunctiva can also be inflamed and in some cases digital pressure over the lacrimal sac can extrude pus through the puncta.

In the late 80's, with the advent of endoscopic nasal surgery, the endonasal endoscopic approach to perform DCR be-

■ Indirizzo per corrispondenza / Address for correspondence:  
Email:

l'epifora, ma la congiuntiva può anche essere infiammata e, in alcuni casi, la pressione digitale sopra il sacco lacrimale fa estrudere pus attraverso gli orifici lacrimali.

Alla fine degli anni '80, con l'avvento della chirurgia nasale endoscopica, l'approccio endonasale endoscopico per effettuare la DCR è diventato fattibile. Questa tecnica è stata descritta per la prima volta da Rice (3); McDonogh, nel 1989, ha riferito il primo studio clinico di DCR (4).

Il tasso di successo riferito della DCR endonasale è molto variabile; varia dal 63 al 95% (5,6,7) dovuto al fatto che la tecnica non è standardizzata. Fino ad oggi l'approccio endonasale non ha dato i risultati attesi, rispetto all'approccio esterno, ma i vantaggi della DCR endonasale rispetto alla DCR esterna hanno reso la prima tecnica più popolare negli ultimi anni (8). Inoltre, negli ultimi anni i risultati clinici hanno mostrato ulteriori miglioramenti.

Lo scopo di questo studio è stato quello di valutare i risultati clinici di 128 DCR endonasali in 108 pazienti con epifora o dacriocistite.

## Metodi

128 DCR endoscopiche primarie con intubazione del dotto lacrimale sono state effettuate presso l'Ospedale "S. Giovanni di Dio" di Melfi (PZ) dal giugno 2011 al gennaio 2014 su 108 pazienti (90 femmine, 18 maschi) con ostruzione del dotto naso-lacrimale acquisita. 20 pazienti sono stati sottoposti a procedura bilaterale, mentre 88 soggetti a DCR endoscopica. 44 pazienti hanno avuto una chirurgia nasale associata alla DCR (36 settoplastica e 8 FESS). I pazienti avevano in media 55 anni. I criteri di esclusione sono stati: l'ostruzione presaccale e malignità dei seni paranasali. La lunghezza minima del follow-up è stata di 12 mesi, con un follow up medio di 24 mesi. Tutte le procedure sono state eseguite da un otorinolaringoiatra ed un oftalmologo. La valutazione pre-operatoria è consistita in un esame oftalmologico con irrigazione del dotto lacrimale, il test alla fluoresceina (Fedt) e l'endoscopia (con ottica di 0° e di 0,8 mm di diametro e 10 cm di lunghezza) delle vie lacrimali nonché un esame ORL con endoscopia nasale (ottica rigida di 0° e 30° con 4 mm di diametro e 18 cm di lunghezza). Una CT è stata richiesta quando una patologia nasale è stata trovata o sospettata in 24 pazienti su 108 (22,2%).

La valutazione post-operatoria ha riguardato il risultato anatomico e funzionale: la valutazione dei sintomi, l'irrigazione naso-lacrimale e la FEDT (9) sono state effettuate ad 1, 6 e 12 mesi dopo la rimozione dei tubicini in silicone. L'operazione è stata definita come un successo se il paziente era asintomatico o i sintomi migliorati entro i 12 mesi.

## Tecnica chirurgica

La procedura è stata eseguita in anestesia generale con un endoscopio a 0° o 30°. La mucosa nasale è stata preparata con tamponi imbevuti di nafazolina al 10% pos-

*came feasible. This technique was described for the first time by Rice; McDonogh, in 1989, reported the first clinical study of endonasal endoscopic DCR.*

*The reported success rate of the endonasal DCR is very variable; it ranges from 63 to 95% due to the fact that the technique is not standardized. To date the endonasal approach has not given the expected results as compared to the external approach, but the advantages of endonasal DCR over external DCR have made the former more popular in the past few years. Furthermore in recent years the clinical results have also shown improvements.*

*The aim of the present study was to evaluate the clinical outcome of 128 endonasal endoscopic DCR in 108 patients with epiphora or dacryocystitis.*

## Methods

*128 primary endoscopic DCR with lacrimal intubation were performed at S. Giovanni di Dio Hospital, Melfi, Italy from June 2011 to January 2014 on 108 patients (90 females, 18 males) with acquired nasolacrimal duct obstruction. 20 patients underwent bilateral procedure, while 88 patients had unilateral endoscopic DCR. 44 patients had a nasal surgery associated with DCR (36 septoplasty and 8 ESS). The patients were on average 55 years old. Patients were scheduled for surgery because of tearing or recurrent dacryocystitis. Exclusion criteria were pre-saccal obstruction and malignancy in the paranasal sinuses. The minimum length of follow up was 12 months, with average follow up of 24 months. All the procedures were performed by one otolaryngologist and one ophthalmologist. The pre-operative evaluation included an ophthalmological examination with lacrimal duct irrigation, fluorescein dye test (FEDT) and endoscopy (rigid 0° optic fiber with 0.8 mm of diameter and 10 cm of length) of lacrimal system as well as an ENT examination with nasal endoscopy (rigid 0° and 30° optic fiber with 4 mm of diameter and 18 cm of length). A CT was requested when a nasal pathology was found or suspected in 24 patients out of 108 (22.2%)*

*The postoperative assessment included the anatomical and functional outcome: subjective recording of symptoms, nasolacrimal irrigation and FEDT realized 1, 6 and 12 months after removal of silicone tubes. The operation was defined as being successful if the patient was asymptomatic or the symptoms improved within 12 months.*

## Surgical technique:

*The procedure was carried out under general anesthesia with an endoscope 0° or 30°. The nasal mucosa was prepared with pledgets soaked in naphazoline 10% placed along the inferior turbinate, axilla of middle turbinate, middle meatus and over the mucosa overlying the maxillary line. Afterwards, mepivacaine 2% and adrenaline 1:100.000 was injected just above and anteriorly to the attachment of the middle turbinate and along the maxillary line.*

*An incision was made with a sickle knife on the nasal lateral wall, starting 10 mm above the head middle turbinate, changing in a vertical incision 10 mm anteriorly the maxillary line*



zionati lungo i turbinati inferiori, ascella del turbinato medio, meato medio e sulla mucosa sovrastante la linea mascellare. Successivamente, mepivacaina al 2% e adrenalina 1: 100.000 è stata iniettata appena sopra e anteriormente all'inserzione del turbinato medio e lungo la linea mascellare.

Un'incisione quadrangolare è stata fatta con un bisturi falciforme sulla parete laterale nasale; si inizia 10 mm sopra il turbinato medio, cambiando direzione verticalmente 10 mm anteriormente alla linea mascellare, per la piena esposizione dell'osso sovrastante il sacco lacrimale, e si prosegue ancora orizzontalmente fino al processo uncinato. Con uno scollatore di Freer, un lembo rettangolare mucoperiosteo viene sollevato fino al processo uncinato, in modo che sia possibile vedere la linea mascellare e il sottile osso lacrimale. Quando il sanguinamento è stata controllato, l'osso sovrastante il sacco lacrimale viene rimosso, eseguendo una osteotomia (circa 2cmx1cm) mediante una fresa diamantata di 2 -4 mm. Nell'esperienza degli Autori, il limite superiore esterno dell'osteotomia è dove la sonda, inserita nel canalicoli, corre orizzontalmente senza incontrare osso nella cavità nasale e senza la necessità di inclinarla, o quando il punctum del canalicolo comune è ben visibile. A questo punto, il sacco viene inciso verticalmente per aprirlo e ampliato con un debrider. I tubi silicone vengono inseriti attraverso i canalicoli inferiore e superiore e legati nel naso. Il lembo mucoperiosteo viene inciso a forma di C e riposizionato lasciando l'osteotomia aperta. Un tampone nasale di 4 centimetri viene posizionato sopra il lembo per 24 ore. Un ciclo di antibiotici per via orale, il collirio antibiotico-sterideo e l'irrigazione nasale con soluzione fisiologica spray vengono prescritti nei successivi 10 giorni. I tubi silicone vengono rimossi quando la mucosa nasale è guarita, in media 35 giorni postoperatori, con un tempo massimo di 45 giorni.

## Risultati

I risultati sono riportati in tabella 1. Il tasso di complicanze è stato: in 4 pazienti un lieve ematoma sottoorbitario; in 2 pazienti enfisema sottocutaneo sottoorbitario; in 6 casi un'emorragia nasale lieve alla rimozione del tampone nasale con successivo nuovo tamponamento, ma senza chirurgia; in 10 pazienti una sinechia nasale postoperatoria. Dopo 12 mesi, il successo sintomatico è stato osservato in 116 su 128 occhi che hanno subito la DCR endoscopica (90,63%), mentre la pervietà al test di irrigazione e al FEDT (9,10) in 120 casi su 128 (93,75%). Non ci sono stati pazienti che, riportando un miglioramento dei sintomi, hanno avuto il test alla fluoresceina negativo. Dopo 6 mesi, tutti i pazienti con le complicanze riportate hanno avuto la risoluzione dei sintomi oculari eccetto che i 4 casi con simechie nasali.

## Discussione

Il successo della DCR endoscopica dipende da vari ele-

*for full exposure of the bone overlying the lacrimal sac and again horizontally until the inferior end of the uncinate process. With Freer elevator, a mucoperiosteal rectangular flap was raised until the uncinate process, so that it was possible to see the maxillary line and the thin lacrimal bone. When bleeding was settled, the bone overlying the lacrimal sac was removed making a large osteotomy (about 2cmx1cm) by a diamond burr of 2-4 mm of diameter. In Authors' experience, the outer upper limit of the osteotomy is where the probe, inserted in the canaliculi, runs horizontally without encountering bone in the nasal cavity and without the necessity of inclining it; or when the punctum of the common canaliculi is well visible. At this point, the sac was cut along its length in order to open it up and enlarged with a debrider. Silicone tubes are inserted through the inferior and superior canaliculi into the nose and tied. The mucoperiosteal flap was incised as a C shape and repositioned leaving the osteotomy open. A 4 cm nasal pack was positioned over the flap for 24 hours. A course of oral antibiotics, antibiotic-steroid eye drops and nasal irrigation with saline spray was given in the following 10 days. Debridement of the intra-nasal wound was included in the post-operative care. The silicone tubes were removed when the nasal mucosa was healed, on average in 35 postoperative days, with a maximum timeframe of 45 days after the operation.*

## Results

*The results are shown in table 1. The complication rate has been: in 4 patients a mild subeyelid hematoma; in 2 patients subeyelid subcutaneous emphysema; in 6 cases a mild nasal hemorrhage at the removal of the nasal pack requiring new nasal packing but without surgery; in 10 patients a postoperative nasal synechia. After 12 months, symptomatic success was observed in 116 out of 128 eyes that underwent endoscopic DCR (90.63%) while patency to syringing and a positive FEDT9,10 in 120 out of 128 (93.75%). There were no patients who reported symptomatic improvement but failed fluorescein testing. After 6 months every patient with complications had symptomatic success except in 4 cases with nasal synechiae.*

## Discussion

*The success of endonasal endoscopic DCR depends on various elements.*

*The site of nasolacrimal obstruction seems to be a major factor influencing the final outcome. According to other Authors<sup>11</sup>, a better outcome is observed in patients with obstruction of the sac or nasolacrimal duct than in those with more proximal obstruction. The identification of the level of obstruction is critical in deciding the most proper management and medical care strategy. This can be detected with classical syringing of the canaliculi, endoscopy of the lacrimal system, dacryography and dacryo-CT. Syringing and dacryography generate high pressure during injection in the canaliculi and may mask an anatomic shrinkage of the lacrimal tract. Furthermore, Beige et al<sup>12</sup> concluded in their study that syringing of the lacrimal system may result in an inaccurate diagnosis (high false posi-*



menti. La sede della ostruzione naso-lacrimale sembra essere uno dei principali fattori che influenzano il risultato finale. Secondo alcuni Autori (11), il risultato migliore si osserva nei pazienti con ostruzione del dotto naso-lacrimale piuttosto che in quelli con una ostruzione presaccale. L'identificazione del livello di ostruzione è fondamentale nel decidere la strategia chirurgica. A tal riguardo, ciò può essere rilevato con il lavaggio effettuato nei canalicoli, l'endoscopia del sistema lacrimale, la dacriografia e la dacrio-CT. Il lavaggio e la dacriografia generano alta pressione durante l'iniezione nei canalicoli e possono mascherare un restringimento anatomico del tratto lacrimale. Inoltre, Beige et al (12) hanno concluso che il lavaggio del sistema lacrimale può causare una diagnosi imprecisa in pazienti con epifora. La dacrio CT permette di valutare funzionalmente il sistema di drenaggio lacrimale, posizionando il mezzo di contrasto nel fornice inferiore dell'occhio e fornisce anche informazioni delle patologie nasali associate. Nell'esperienza degli Autori, l'endoscopia del sistema lacrimale permette la corretta localizzazione e la visualizzazione diretta della causa dell'epifora, dell'infiammazione cronica, o della dacriocistite. Un'endoscopia del sistema lacrimale è, quindi, un metodo minimamente invasivo che permette di scegliere la terapia chirurgica più appropriata; la CT viene eseguita solo in caso di patologia nasale associata.

Un altro fattore significativo, che influenza il risultato, è l'anatomia e la patologia delle strutture nasalì circostanti, come un setto nasale deviato, ipertrofia del turbinato medio, poliposi nasale, ecc, che rende difficile l'approccio nasale. Anche la conformazione e la posizione del sacco rispetto alle altre strutture possono influenzare l'esito, impedendo la formazione di una adeguata fistola lacrimale e la possibilità di un'aderenza che si verifica tra il turbinato medio o il setto e l'ostio della rinostomia. Pertanto, è importante correggere una patologia nasale al fine di creare le condizioni per ottenere buoni risultati. In 12 pazienti senza alcun miglioramento dopo 6 mesi, 6 avevano polipi nasali o sinusite, 4 sinechie nasali e 2 tessuto cicatriziale.

Gli Autori ritengono, alla luce dei risultati, che è importante seguire il paziente dopo la rimozione dei tubicini di silicone, in quanto il processo di guarigione può portare ad un peggioramento sia dei sintomi e dei risultati per 6 mesi dopo l'intervento, mentre i risultati si stabilizzano dopo sei mesi (tabella 1). Un punto chiave del successo della DCR endonasale è, infatti, il processo di guarigione delle ferite della mucosa nasale. Il meccanismo preciso non è ancora chiaro. Due fasi sono caratteristiche del processo di riparazione: una fase di rigenerazione e lo stadio di fibrosi (8). Alcuni stimoli come lo shock termico, il laser, le infezioni virali e batteriche, la risposta autoimmune, l'esposizione chimica, un'ampia esposizione dell'osso, possono rallentare il processo di guarigione o creare granulazioni o fibrosi anomale che impediscono la corretta guarigione della ferita (13).

*(ive diagnosis) in patients with epiphora. Dacryo-CT allows evaluating functionally the lacrimal drainage system by injecting a contrast agent into the lower eye fornix and also provides information of the associated nasal pathologies. In Authors' experience, endoscopy of the lacrimal system allows correct localization and direct visualization of the cause of epiphora, chronic inflammation, or dacryocystitis. Mucosal structure, scars and stenosis can be visualized and distinguished from debris and mucous secretions which can be easily removed. An endoscopy of the lacrimal system is a minimally invasive method that allows choosing the most appropriate surgical therapy CT scan is performed only in case of associated nasal pathology.*

*Another significant factor that influences the outcome is the anatomy and pathology of the surround structures such as a deviated nasal septum, hypertrophic middle turbinate, nasal polyposis etc., that makes difficult the nasal approach to the sac. Also the conformation and the position of the sac in respect to the other structures can influence the outcome preventing the formation of an adequate lacrimal fistula and the possibility of an adhesion occurring between the middle turbinate or septum and the ostium of rhinostoma. Therefore, it is important to correct a nasal pathology in order to create the conditions for successful results. In the 12 patient with no improvement after 6 months, 6 had nasal polyps or sinusitis, 4 had nasal synechiae and 2 had unknown problems in scar tissue.*

*The Authors consider, in the light of their results, that it is important to follow the patient after removal of the silicone tubes, because the healing process may lead to a worsening in both the symptoms and the results for up to 6 months post-operatively, while the results stabilize after six months (table 1). Another key point in the success of endonasal DCR is, in fact, the process of wound healing of the nasal mucosa. The precise mechanism is still unclear. Two phases are characteristics of the repair process: a regenerative phase and the stage of fibrosis8. Some stimuli such as heat shock, laser, viral and bacterial infections, autoimmune response, chemical exposure, large rowing bone, may slow down the healing process or create granulation or abnormal fibrosis that prevents a correct wound healing13.*

*Still controversial are some variations of the surgical technique such as flaps creation. Both Wormwald5 and Levine14 report a 95% rate of success when using flaps between nasal mucosa and sac mucosa; other Authors15 remove the medial wall of the lacrimal sac while others 16 use various types of laser to create the breach in the lateral nasal wall. As to the size of bony ostium, in some studies15, 17, 18 it is suggested to create an ostium that is large at least 1cmx1cm, while according to other Authors19 it is not necessary to create a large lacrimal fistula to obtain good results. It is still debated whether or not silicone intubation of the lacrimal passages should be used in endonasal endoscopic DCR. Silicone tubes can keep mucosal flaps in place or just maintain the patent rhinostoma until the healing is completed. However bi-canicular tubing can cause production of granulation tissue and infections. In any case, there is general agreement to avoid leaving large raw bony surface and to create a large bone window in the nasal*



Ancora controverse sono alcune variazioni di tecnica chirurgica, come la creazione del lembo. Sia Wormwald (5) e Levine (14) riportano un 95% di successo quando si utilizza il lembo del sacco lacrimale ribaltato sulla mucosa nasale; altri Autori (15) rimuovono la parete mediale del sacco lacrimale, mentre altri (16) utilizzano diversi tipi di laser per creare la breccia nella parete nasale laterale. Per quanto riguarda le dimensioni dell'ostio, in alcuni studi (15, 17, 18) si suggerisce di creare un ostio che è grande almeno 1cmx1cm, mentre secondo altri (19) non è necessario creare una grande fistola lacrimale per ottenere buoni risultati. E' ancora dibattuto se utilizzare o meno i tubicini di silicone nelle vie lacrimali al termine della DCR endoscopica. I tubi in silicone hanno, al parere degli Autori, la funzione di tenere in sede i lembi di mucosa creati o, semplicemente, di mantenere pervia la rinostomia fino a guarigione completa.

Tuttavia, gli stessi tubicini possono causare la produzione di tessuto di granulazione e facilitare le infezioni. Mann et al (20) hanno dimostrato che non vi è alcun motivo per la persistenza oltre le 4 settimane dei tubicini, per impedire la chiusura della rinostomia. Essi hanno descritto una riduzione delle dimensioni dell'ostio di 1,7 mm entro quattro settimane; nessuna riduzione delle dimensioni dell'ostio è stata dimostrata dopo questo periodo. Essi hanno concluso che il tasso di successo con o senza intubazione prolungata è la stessa. Gli Autori rimuovono i tubicini in silicone, in media, al 35 giorno postoperatorio, reputando che l'ulteriore presenza degli stent in silicone non è necessaria e può causare granulazioni facilitando il ripetersi dei problemi. Gli Autori non concordano con altri studi che considerano l'uso dei tubicini del tutto inutile (21,22).

### Conclusioni

La DCR endoscopica, nell'esperienza degli Autori, ha un tasso di risoluzione della sintomatologia del 90,63%, e un successo funzionale ed anatomico nel 93,75% dei casi a 12 mesi di follow-up.

Questi sono risultati promettenti alla luce del fatto che la DCR endoscopica è una tecnica minimamente invasiva in quanto evita cicatrici del viso, preserva la funzione di pompa muscolare dell'orbicolare dell'occhio, permette un recupero più rapido dopo l'intervento chirurgico, presenta un modesto sanguinamento intraoperatorio e poche complicazioni (7). La DCR endoscopica mostra, inoltre, potenziali vantaggi e ottimi risultati nel trattamento dell'ostruzione dotto naso-lacrimale (23).

Nel nostro studio, considerando il test alla fluorescenza e la pervietà dopo irrigazione delle vie lacrimali, la DCR endoscopica ha avuto successo nel 93,75% dei casi. La percentuale di successo è paragonabile a quella riportata da altri Autori (24,25) e molto vicina ai risultati della DCR esterna. Visti gli innegabili vantaggi e gli ottimi risultati, la DCR endoscopica dovrebbe essere considerata la prima scelta nel trattamento chirurgico dell'ostruzione del dotto naso-lacrimale.

*side and to insert silicone tubes. Mann et al 20 demonstrated that there is no reason for prolonged intubation (> 4 weeks) to prevent rhinostomy closure. They described a reduction of the ostium size of 1.7 mm within four weeks. No reduction of the ostium size was demonstrated after this period. They concluded that the success rate with or without prolonged intubation is the same. The Authors remove the silicone tubes, on average, in 35 postoperative days. They believe that the continued presence of silicone stents is not necessary and can cause granulations facilitating a recurrence of the issues. They don't agree with Authors 21,22 that consider intubation completely useless.*

### Conclusions

*Endonasal endoscopic DCR in Authors' experience has a 90.63% symptomatic success rate, and a 93.75% functional and anatomic success rate at the 12 month follow up.*

*These are promising results in light of the fact that endonasal endoscopic DCR is a minimally invasive technique that avoids facial scarring, preserves the orbicularis oculi muscle pump function, allows a quicker recovery after surgery, and has little intraoperative bleeding and few complications when performed well 7. Endonasal endoscopic DCR shows potential advantages and successful results and has turned out to be an accepted technique for the treatment of nasolacrimal duct obstruction 23.*

*In our study, by simply taking into consideration the objective dye test and patency to lacrimal syringing criteria, the endonasal endoscopic DCR was successful in 93.75% of the cases. The success rate is comparable to that reported by other Authors 24,25 and very close to the external DCR results. The recent trend of the success rate of endonasal DCR in literature is closing the gap with external DCR, but it still falls short because the procedure itself is not standardized. Given the undeniable advantages and the excellent results, the endoscopic DCR should be considered the first choice treatment of nasolacrimal duct obstruction.*

### Bibliografia - References

- 1) Caldwell GW. Two new operations for obstruction of the nasal duct with preservation of the canaliculi. Am J Ophthalmol. 1893;189-92.
- 2) Toti A. Nuovo metodo conservatore di cura radicale delle suppurazioni croniche del sacco lacrimale. Clin Mod Firenze. 1904; 10: 385-9.
- 3) Rice DH. Endoscopic intranasal dacryocistorhinostomy: a cadaver study. Am J Rhinol. 1988;2:127-8.
- 4) Mc Donogh M, Meiring H. Endoscopic transnasal dacryocistorhinostomy. J Laryngol Otol. 1989; 103:585-7.
- 5) Wormald PJ. Powered endoscopic dacryocystorhinostomy. Laryngoscope. 2002;112:69-72.
- 6) Tsirbas A, Wormald PJ. Mechanical endoscopic dacryocystorhinostomy with mucosal flaps. Br J Ophthalmol. 2003;87:43-7.
- 7) Anijer D, Dolan L, MacEwan CJ. Endonasal versus external dacryocystorhinostomy for nasolacrimal duct obstruction



<b>Controllo dopo rimozione tubicini Timing after removal of silicone tubes</b>	<b>Occhi con test di irrigazione positivo Eyes with positive lacrimal duct irrigation</b>	<b>Occhi con FEDT positiva Eyes with positive FEDT</b>	<b>Occhi con risoluzione o miglioramento dei sintomi Eyes with resolution or improvement of the symptoms</b>
<b>Dopo 1 mese At the first month</b>	<b>125 (97,6 %)</b>	<b>123 (96 %)</b>	<b>120 (93,75%)</b>
<b>Dopo 6 mesi At the sixth month</b>	<b>120 (93.75 %)</b>	<b>118 (92.2 %)</b>	<b>116 (90.63 %)</b>
<b>Dopo 12 mesi At the twelfth month</b>	<b>120 (93.75 %)</b>	<b>118 (92.2 %)</b>	<b>116 (90.63 %)</b>

*Tabella 1: test di irrigazione, test alla fluoresceina (FEDT) e miglioramento o risoluzione dei sintomi a 1, 6 e 12 mesi dalla rimozione dei tubicini.*

*Table 1: lacrimal duct irrigation, fluoresceine dye test (FEDT) and improvement or resolution of the symptoms at 1, 6 and 12 months after removal of silicone tubes.*

(Review). 2011 The Cochrane Collaboration. Published by John Wiley & Sons, Ltd.

8) Goldberg RA. Endonasal dacryocystorhinostomy .Is it really less successful?. Arch Ophthalmol 2004;122:108-109.

9) Guzek JP, Yoon PS, Stephenson CB, Stephenson CM, Shavlik GW. Lacrimal testing:

The dye disappearance test & Jones test. Annals of Ophthalmology. 1996;28:357-63.

10) Calkins LL. Lids, Lacrimal apparatus and Conjunctiva. Arch Ophthalmol. 1964;71:131-43

11) Yung MW, Hardman- Lea S. Analysis of the results of surgical endoscopic dacryocystorhinostomy: effect of the level of obstruction. Br J Ophthalmol 2002; 86: 792 - 794

12)Beige B, Uddin JM, McMullan TF, Linardos E. Inaccuracy of diagnosis in a cohort of patients on the waiting list for dacryocystorhinostomy when the diagnosis was made by only syringing the lacrimal system. Eur J Ophtalmol 2007 Jul-Aug 17(4) 485-9

13)Leong SC, Macewen CJ, White PS. A systematic review of outcomes after dacryocystorhinostomy in adults. Am J Rhinol Allergy. 2010 Jan-Feb;24(1):81-90.

14)Levin B, Naganathan V, Amanda A, Ghabrial R. Endonasal dacryocystorhinostomy - an Australian perspective. Asian J Ophtalmol 2007;9(3):117-121

15)Sindwani R, Metson MB. Endoscopic dacryocystorhinostomy. Operative Techniques in Otolaryngology 2008;19:172-176.

16)Lee S, Yen MT. Laser-assisted dacryocystorhinostomy: a viable treatment option? Curr Opin Ophthalmol. 2011;22(5):413-418.

17)Moras K, Mahesh Bhat, Shreyas CS, Mendonca Norman, Pinto George External dacryocystorhinostomy versus endoscopic dacryocystorhinostomy: a comparison. Journal of clinical and Diagnostic Research 2011;5(2):182-186.

18)Zuercher B, Tritten JJ, Friedrich JP, Monnier P Analysis of functional and anatomic success following endonasal dacryocystorhinostomy. Ann Otol Rhinol Laryngol. 2011;120(4):231-238.

19)Sham CL, Van Hasselt CA. Endoscopic thermal dacryocystorhinostomy Laryngoscope 2000;110:1045-1049

20)Mann BS, Wormald PJ. Endoscopic assessment of the dacryocystorhinostomy ostium after endoscopic surgery. Laryngoscope. 2006 Jul;116(7):1172-4.

21)Smirnov G, Tuomilehto H, Teräsvirta M, Nuutinen J, Seppä J. Silicone tubing after endoscopic dacryocystorhinostomy: is it necessary? Am J Rhinol. 2006 Nov-Dec;20(6):600-2.

22)Unlu HH, Gunhan K, Baser EF, Songu M. Long-term results in endoscopic dacryocystorhinostomy: is intubation really required?Otolaryngol Head Neck Surg. 2009 Apr;140(4):589-95.

23)Malhotra R, Wright M, Olver JM. A consideration of the time taken to do dacryocystorhinostomy (DCR) surgery Eye 2003;17:691-696

24)Karim R, Ghabrial R, Lynch TF, Tang B. A comparison of external and endoscopic endonasal dacryocystorhinostomy for acquired nasolacrimal duct obstruction. Clinical Ophthalmology 2011;5: 879-989

25)Ben Simon GJ, Joseph J, Lee S, Schwarcz RM, McCann JD, Goldberg RA. External versus endoscopic dacryocystorhinostomy for acquired nasolacrimal duct obstruction in a tertiary referral center. Ophthalmology. 2005 Aug;112(8):1463-8.



# Un caso di localizzazione ORL di malattia di Lemierre

## *ENT Lemierre's disease*

U. Pignatelli, L. Gentile, G.P. D'Addazio, P. Gamba, G. Licursi, U. Moz

*ENT Unit Poliambulanza Foundation Brescia Italy*

### Abstract

Descriviamo un caso di malattia di Lemierre visitato e trattato nel Reparto di ORL di Fondazione Poliambulanza di Brescia a localizzazione auricolare. La malattia di Lemierre è caratterizzata da una storia clinica di recente infezione orofaringea, con evidenza clinica o radiologica di tromboflebite della vena giugulare interna ed isolamento di agente patogeno anaerobio con maggior frequenza *Fusobacterium necrophorum*. In questo caso la localizzazione era a livello auricolare destro con complicanza polmonare. Discuteremo del percorso diagnostico, del tipo di trattamento e ribadiamo il concetto della necessità di un approccio multidisciplinare.

**Parole chiave:** Malattia di Lemierre - Localizzazione orl - Diagnosi e terapia.

### Caso Clinico

Un giovane albanese di 23 anni è arrivato al Pronto Soccorso dell'Istituto Ospedaliero Fondazione Poliambulanza lamentando cefalea e dolore all'orecchio destro. La storia clinica recente consiste in una lobectomia polmonare per accesso circa 1 mese prima; nella storia clinica passata riferisce di episodi di otite cronica fin dalla fanciullezza.

Valutazione orl: otite cronica con otorrea ed arrossamento della cute retroauricolare, dolore alla digitopressione, cefalea persistente.

Sospettando la malattia Lemierre è stata eseguita una TAC con il seguente riscontro: "... grande deiscenza della parete posteriore della mastoide proprio vicino al solco sigmoideo .... il materiale è paragonabile a liquido cerebrale. La cavità dell'orecchio è piena di materiale come tessuto infiammatorio che racchiude la catena degli ossicini. Trombosi venosa del seno sigmoideo omolaterale" (Fig. 2).

L'esame uditivo deponeva per: ipoacusia di tutte le frequenze con gap osseo medio basso. Si è optato quindi per un approccio combinato medico e chirurgico basato su: terapia antibiotica con metronidazolo 500 mg ogni 8 ore e meropenem 1 g ogni 8 ore e chirurgia: dopo l'intervento chirurgico il paziente ha iniziato la terapia con eparina sottocutanee a basso peso molecolare (EBPM).

### Abstract

**Introduction:** ChroWe related about a case of Lemierre's disease, treated at the ENT Department of Poliambulanza Hospital Foundation in Brescia (Italy) . Lemierre's is a rare disease, characterized by a history of recent oropharyngeal infection , clinical or radiological evidence of internal jugular vein thrombosis, and isolation of anaerobic pathogens, mainly *Fusobacterium necrophorum*. In our case there is a localization in right ear and lung. We discussed about diagnosis, treatment and need of multidisciplinary team approach.

**Key Words:** Lemierre' disease - ENT localization - Diagnosis and treatment.

### Case Report

*A young Albanian man of 23 years old arrived to the Emergency Department of Poliambulanza Hospital Foundation complaining for headache and right ear pain. Recent medical history consistent with a lung lobectomy for abscess about 1 month before; past medical history of right chronic otitis from childhood .*

*ENT valuation: chronic otitis with otorrea and redness of the retroauricular skin, pain at soft digital pressure, persistent headache.*

*Suspecting for Lemierre disease a CT scan was performed with evidence of: "...big deishence of posterior wall of right mastoid near sigmoid sulcus .... the material is like brain-fluid. The ear cavity is full of material like infammatory tissue and encase the ossicular chain ;thrombosis of ipsilateral sigmoid lateral vein" (Fig. 2).*

*The auditory exame was : hypoacusis of all frequencies with bone gap middle down.*

*Surgical andmedical evaluation decided for a multidisciplinary approach that was: antibiotic therapy with Metronidazole 500 mg every 8 hours and Meropenem 1 gr every 8 hours and surgery: after surgery started therapy with subcutaneos low-molecular-weight heparin (LMWH).*

*We operated on the patient in emergency state : we perfomed open timpanoplasty with mastoidectomy finding a big amount of pathologic secretions and colectatoma in mastoid cavity with thrombosis of lateral sinus: we cleared all even the middle ear cavity with preservation of ossicular chain ( malleus and staple: incus had a large mutilation and was removed).*

■ Indirizzo per corrispondenza / Address for correspondence: U. Pignatelli ENT Unit Poliambulanza Foundation, Brescia  
E-mail: u.pignatelli@alice.it

Abbiamo operato il paziente in urgenza: abbiamo effettuato una timpanoplastica aperta con mastoidectomia trovando una grande quantità di secrezioni patologiche ed un colesteatoma nella cavità mastoidea con trombosì del seno laterale: abbiamo pulito tutto, anche la cavità dell'orecchio medio con la conservazione della catena degli ossicini (martello e staffa: l'inudine aveva una grande mutilazione ed è stata rimossa). Il decorso post operatorio è stato regolare senza complicanze e il paziente è stato dimesso dopo 5 giorni.

All'esame coltura è stato isolato il seguente patogeno: *Fusobacterium Necrosporium*.

Il risultato dell'esame istologico è stato il seguente:

1) Dalla mastoide e dalla cavità dell'orecchio medio: componente lamellare cheratinica.

2) Dalla cavità dell'orecchio medio su polipo sentinella: polipo infiammatorio.

3) Dal tessuto nei pressi del seno laterale destro: tessuto di granulazione.

Dopo 1 mese la cavità si presentava in buone condizioni senza ripresa di malattia e senza cefalea. Il paziente è andato a casa di nuovo (Albania). Alla telefonata di controllo ha dichiarato di stare bene: gli abbiamo consigliato di fare una visita ORL di controllo periodica.

## Discussione

Nel 1936 Andre Lemierre pubblicò una descrizione di 20 casi su Lancet che ha riguardava l'insieme di sepsi, lesioni polmonari metastatiche e, più comunemente, l'isolamento di *Bacillus Fundiliformis* ora conosciuta come *Fusobacterium necrophorum*. Il rapporto maschi-femmine è di 1:1,2 e l'età variava da 2 mesi a 78 anni. Un gran numero di casi si presenta nella seconda decade di vita (51%), seguita dalla terza decade (20%), e poi dalla prima decade (8%). Le principali fonti di infezione sono tonsille, la faringe e il torace seguite da laringe ed orecchio medio. La più comune sintomatologia che si manifesta primariamente è un mal di gola, seguito da tumefazione e dolore al collo. I principali microrganismi che provocavano tali sintomi erano *F. necrophorum* (57%), *F. species* (30%) e *F. nucleatum* (3%), seguiti da streptococchi anaerobici e altri anaerobi Gram-negativi diversi (10%). La mortalità è del 5%. La prima metodica strumentale di indagine è l'rx del torace, anche se viene più comunemente richiesta la TAC del collo e torace, ecografia, risonanza magnetica.

Le modalità di trattamento possono essere terapia antibiotica, terapia anticoagulante e trattamento chirurgico o un approccio combinato.

L'antibiotico di elezione per questo trattamento è il metronidazolo, Ampicillina/sulfactante, imipenem, meropenem, betalattamica/beta-lattaminasi inibitori combinazioni (per esempio, piperacillina/tazobactam): la durata del trattamento varia tra 3 e 6 settimane: le recidive sono state documentate quando il trattamento ha una durata inferiore alle 2 settimane.

*The post surgery course was good without complication and the patient was discharged after 5 days.*

*The antimicrobial culture isolate: *Fusobacterium Necrosporium*.*

*The pathologic report was:*

1) *From mastoid and middle ear cavity: cheratinic lamellar material*

2) *From middle ear cavity about sentinel polyp: inflammatory polyp*

3) *From tissue near right lateral sinus: granulation tissue*

*After 1 month the cavity was good without disease and there was no headache. The patient went back home (Albania). At the check phone call he was fine : we recommended him to do ENT periodic visit.*

## Discussion

*In 1936 Andre Lemierre 1 published a description of 20 cases in the Lancet that involved the constellation of sepsis, metastatic pulmonary lesions and, most commonly ,the isolation of *Bacillus Fundiliformis* now known as *Fusobacterium necrophorum*3 6. The male to female ratio is 1:1,2 and the ages ranged from 2 months to 78 years .Most cases present in 2nd decade of life (51%),followed by the 3rd decade (20%),and then the 1st decade (8%). The main sources of infection are tonsil, pharynx, and chest followed by larynx and middle ear . The most common first clinical presentation is a sore throat followed by neck mass and neck pain. The main 12offending microorganisms are *F.necrophorum*(57%), *F.species* (30%) and *F. Nucleatum* (3%) ,followed by anaerobic streptococci and other miscellaneous Gram-negative anaerobes(10%). Mortality is encountered in 5%.*

*The first line investigation is chest X ray but the the most commonly requested scan is CT scan of neck/chest, ultrasound, MRI.*

*The treatment modalities are antimicrobical 10 , anticoagulant, and surgical treatment or a combination of the above.*

*The antimicrobial 11 treatment is metronidazole, ampicillina/sulbactam, imipenem, meropenem, betalactam/betalactamase inhibitors combinations (eg, piperacillin/tazobactam): the duration of treatment ranging between 3 and 6 weeks: relapses have been documented when treatment was given for less than 2 weeks*

*The anticoagulation1 is administrated in 30% of the patients and especially in cases with internal vein,jugular thrombosis, brain complications or septic thrombotic pulmonary emboli( at fisrt LMHV subcutaneous enoxaparin 1mg/kg twice daily with conversion to warfarin achieved a targed international normalization ratio between 2 and 3 for a therapeutic duration of 3 months)*

*The surgical treatment is focused to remove septic foci 8(pulmonary,jugular vein thrombosis, abscess of brain or mastoid and middle ear cavity).*

*Even in our case we treated the patient with a combination of metronidazole and meropenem,open timpanoplasty with mastoidectomy and subcutaneous low weight enoxaparin.*

*In conclusion for a successfull resolution of Lemierre's disease we need of multidisciplinary approach.*

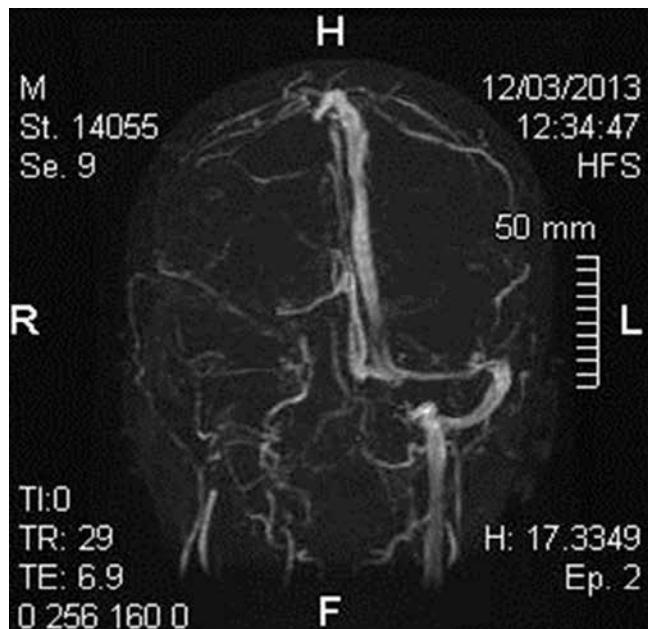


La terapia anticoagulante viene somministrata nel 30% dei pazienti e soprattutto nei casi con trombosi venosa giugulare interna, in caso di complicazioni cerebrali o embolia polmonare trombotico settico (per prima metodica enoxaparina per via sottocutanea 1 mg/kg due volte al giorno con conversione al warfarin raggiungendo un rapporto internazionale di normalizzazione tra 2 e 3 per una durata terapeutica di 3 mesi).

Il trattamento chirurgico è focalizzata a rimuovere i foci settici (polmonare, trombosi venosa giugulare, ascesso cerebrale ,a livello della mastoide e della cavità dell'orecchio medio).

Anche nel nostro caso abbiamo trattato il paziente con una combinazione di metronidazolo e meropenem, timpanoplastica aperta con mastoidectomia ed eparina sotocutanea a basso peso molecolare.

In conclusione al fine di poter avere successo nella cura della Malattia di Lemierre abbiamo bisogno di un approccio multidisciplinare.

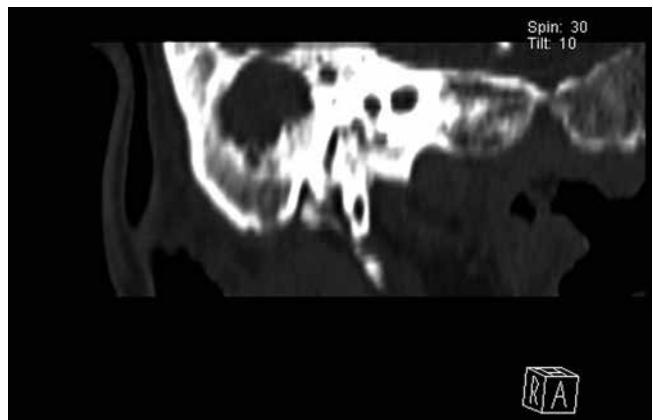


*Fig. 1:*

*Fig. 1: Brain RMN with alteration of perfusion on the right side.*

## Bibliografia - References

- 1) Karkos PD, Asrani S, Karkos CD, Leong SC, Theochari EG, Alexopoulos TD, Assimakopoulos AD. Lemierre Syndrome: A Systematic Review. Laryngoscope 2009; 119: 1552-1559
- 2) Wright WF, Shiner CN, Ribes JA. Lemierre syndrome. South. Med. J. 2012; 105(5): 283-8.
- 3) Kuppalli K, Livorsi D, Talati NJ, Osborn M. Lemierre's syndrome due to *Fusobacterium necrophorum*. Lancet Infectious diseases 2012; 12(10): 808-815.
- 4) Brown LM, Wallwork B. Lemierre's - the sinister sore throat. J. Laryngol Otol 2007; 121: 692-694.
- 5) Ockrim J, Kettlewell S, Gray GR. Lemierre's syndrome. J.R. Soc. Med. 2000; 93:480-481.
- 6) Giridharan W, De S, Osman Ez, et al. Complicated otitis media caused by *Fusobacterium necrophorum*. J. Laryngol. Otol. 2004; 118:50-53.
- 7) Bentham JR, Pollard AJ, Milford CA, et al. Cerebral infarct and meningitis secondary to Lemierre's syndrome. Pediatr Neurol. 2004;30: 281-283
- 8) Shaham D, Sklair-Levy M, Weinberger G, Gomri JM. Lemierre's syndrome presenting as multiple lung abscesses. Clin. Imaging 2000;24:197-199.
- 9) Dool H., Soetekouw R, van Zanten M, Grooters E. Lemierre's syndrome: three cases and a review. Eur arch Otorhinolaringol 2005; 262: 651-654.
- 10) Seo YT, Kim MJ, Kim JH, et al. Lemierre syndrome: a case of postanginal sepsis. Korean J Intern Med 2007; 22:211-214.
- 11) Maramattom VB, Wijdicks EF. Bilateral internal jugular vein thrombosis: a benign presentation of Lemierre's syndrome? Cerebrovasc. Dis. 205;19: 139-140.
- 12) Moore BA, Dekle C, Wekhaven J. Bilateral Lemierre's syndrome: a case report and literature review. Ear Nose Throat J 2002; 81: 234-242.



*Fig. 2:*

*Fig. 2: TC Coronal view with mastoiditis and earlier erosion of the top of right mastoid.*



# Pseudotumor infiammatorio della ghiandola parotide: case report

*Inflammatory pseudotumor of the parotid gland: a case report*

A. Caranti<sup>1</sup>, A. Cimatti<sup>2</sup>

<sup>1</sup> Medicine student at Otorhinolaringoiatric department at San Pier Damiano Hospital, Faenza (Ravenna), Italy

<sup>2</sup> Head of Otorhinolaringoiatric dept. at San Pier Damiano Hospital, via Portisano 1, 48018 Faenza (Ravenna), Italy

## Abstract

Lo Pseudotumor Infiammatorio della ghiandola parotide è un reperto clinico benigno di origine sconosciuta, raramente riportato in letteratura con appena 12 casi riportati. Il profilo clinico e radiografico è simile, e spesso confuso, con quello di altri tumori maligni, e solo una indagine istologica può permettere di discriminarlo. Nel nostro report descriviamo un caso di Pseudotumor Infiammatorio della ghiandola parotide in un uomo di 53 anni, HIV e HCV positivo, che si rivolse alla nostra clinica per l'esecuzione di una rimozione chirurgia di una massa in parotide destra. L'ecografia, la TC e l'esame clinico pre-operatorio mostrarono una nodularità con margini regolari che lasciava propendere per un tumore di Warthin. L'esame istologico eseguito sul pezzo chirurgico ha concluso invece per una lesione fibrosa proliferativa con un infiltrato infiammatorio e positiva per la colorazione all'Actina, quadro compatibile con diagnosi di Pseudotumor Infiammatorio.

## Caso Clinico

Un paziente maschio di 53 anni viene ammesso presso la nostra struttura nel novembre 2015 per una tumefazione della ghiandola parotide destra. La lesione non si associa ad alcun sintomo sistematico rivelante come febbre, astenia o perdita di peso. L'esame clinico rilevò la presenza di un nodulo duro con bordi regolari e non dolorante né dolorabile alla palpazione. In anamnesi, il paziente risultava positivo per HIV e portatore cronico di HCV. Egli aveva anche una storia di positività per HBV e HAV. Egli era anche un forte fumatore (20 sigarette al dì), fu esposto ad asbesto sul luogo di lavoro, ed aveva una storia di BPCO con sporadici focolai acuti a livello del polmone destro. Era inoltre ipercolesterolemico e con un BMI di 27,3Kg/m<sup>2</sup>. In passato, la presenza di ricorrenti tumefazioni della tiroide portò alla scoperta di una ciste tiroidea non associata a modificazioni del TSH. In passato, il paziente fu operato di tonsillectomia, appendicectomia, riparazione del tendine di Achille e turbinoplastica.

## Abstract

*Inflammatory pseudotumor of the parotid gland is a benign clinical finding of unknown origin, rarely reported in literature, with only about twelve cases reported. Clinical and radiograph profiles are similar, and often confuse, with the ones of malignant tumors, and only histological investigation can discriminate it. In our report, we describe a case of inflammatory pseudotumor of parotid gland in a 53 years old man, HIV and HCV positive, who accessed to our department for surgical excision of a right parotid mass. Ultrasound, CT scan and pre-operative examination showed a nodularity with regular edge propending for Warthin tumor diagnosis. Histologic examination of surgical excision concluded for a proliferative fibrous lesion with inflammatory components and positive for Actin compatible with diagnosis of Inflammatory Pseudotumor.*

**Keywords:** *Inflammatory pseudotumor (IPS) – parotid gland – head and neck pseudotumor.*

## Case Report:

*A 53 years old male patient, was admitted to our Clinic in november 2015 due to tumefaction of right parotid gland. The lesion was not related to any relevant systemic symptoms like fever, asthenia, or weight loss. Clinical examination revealed a nodular hard lesion, with regular border and without pain, spontaneous or evocated. In anamnesis, the patient result positive for HIV and chronic carrier for HCV. He has also an history of HBV and HAV positivity in the past. Heavy smoker (20 cigarettes/day) and work exposed to asbestos, he has an history of BPCO with sporadic acute events due to right lug. Hypercholesterolemia and BMI of 27,3 Kg/m<sup>2</sup> was also reported. In the past, recurrent tumefactions of thyroid gland with diagnosis of thyroid cist not associated with TSH value alteration. He has been already operated for adeno-tonsillectomy, appendectomy, reparation of Achilles' tendon and bilateral turbinoplasty. Blood tests was not significates (RBC and WBC was normal, PCR < 0,1 mg/dl, Fibrinogen 441, Creatinine 0,70 mg/dl and non disionemya). Ultrasound examination showed a moderated volume augmentation of the right parotid gland and inside its parenchyma a hypo-anechoic*

■ Indirizzo per corrispondenza / Address for correspondence: A. Caranti - Medicine student at Otorhinolaringoiatric department at San Pier Damiano Hospital, Faenza (Ravenna), Italy. - E-mail: alberto.caranti@gmail.com



Gli esami ematochimici non mostravano nulla di rilevante (GR e GB nella norma, PCR < 0,1 mg/dl, Fibrinogeno 441, Creatinina 0,70 mg/dl e non disionemie). L'esame ecografico mostrava un moderato aumento di volume della ghiandola parotide destra e, nello spessore del parenchima, una massa nodulare ipo-anaecogena di 20x32 mm, caratterizzata da un margine regolare e da un moderato aumento del flusso ematico. Alla TC, eseguita senza e con mdc, mostra una neoformazione di 30x20x25 mm, con un margine regolare compatibile con una diagnosi di tumore di Warthin. Non vi erano invece evidenze di tumefazioni laterocervicali. In accordo con il paziente, si programmò l'escissione chirurgica del lobo laterale della tiroide che includeva la massa. Dopo due giorni di convalescenza, il paziente è stato dimesso senza complicazioni. L'esame istologico della massa rivelò la presenza di una lesione sclerosante proliferativa del parenchima e di un linfonodo intraparotideo. Inoltre, si ritrovarono anche macrofagi schiumosi. L'esame di immunoistochimica ulteriormente svolto mostrò una positività per l'Actina ed una negatività per Keratina, S-100, Caldesmone, P-63, Desmina e CD-34. Un test di alcol acido resistenza per la ricerca di micobatteri risultò negativo. La diagnosi conclusiva fu di Pseudotumor Infiammatorio, probabilmente dovuto ad un evento reattivo. Dopo due mesi di follow-up, il paziente non riportò complicanze connesse all'intervento chirurgico.

### Discussione

Lo Pseudotumor Infiammatorio (PSI) può essere definito come una massa localizzata costituita da uno stroma fibroso ed un infiltrato infiammatorio cronico con una predominanza di plasmacellule e istiociti, oltre che essere caratterizzato per l'assenza di displasia e di figure mitotiche (1). Venne descritto per la prima volta nel 1939 da Brunn. È una patologia che interessa più spesso bambini e giovani adulti, con una preferenza per le donne e per le popolazioni non-europee. Il PSI può apparire in diversi organi del corpo umano, con una frequenza maggiore per polmone, fegato, milza e orbita (2,3). È altresì noto come tumore infiammatorio miofibroblastico, granuloma a plasmacellule, pseudotumor xantomatoso o fibrosarcoma infiammatorio (4). Someren, nel 1978, ha classificato il PSI in 3 categorie basate sui rilevamenti istologici:

1. Tipo Xantogranuloma (o tipo istiocitario),
2. Tipo granuloma a plasmacellule,
3. Tipo sclerotico (o granuloma sclerosante) (3,4).

Microscopicamente, le lesioni sono caratterizzate in base a quattro componenti tipiche: istiociti, miofibroblasti, plasmacellule e linfociti. Queste cellule risultano positive per colorazioni all'Actina, Vimentina e CD3. Lo stroma è spesso edematoso e con un aumento della vascolarizza-

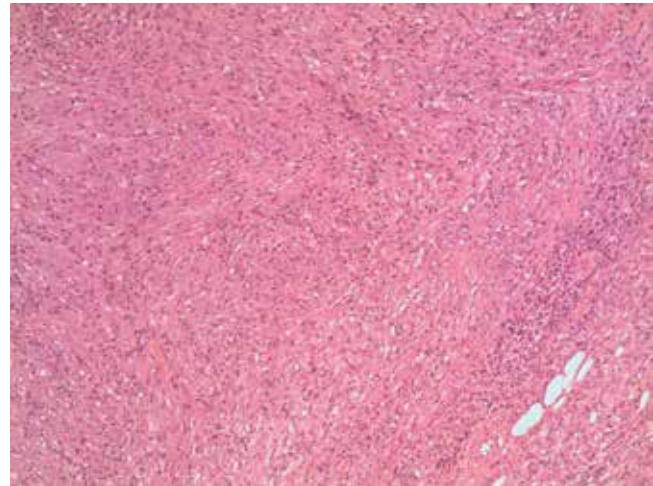
*nodularity of 20x32 mm, characterized by regular edge and low augmentation of vascular flow. CT scan, due with and without contrast medium, concluded for a neoformation of 30x20x25 mm, with regular edge compatible with diagnosis of Warthin tumor. There was not evidence of later cervical lymphadenopathies. In accord with patient, was programmed a surgical excision of parotid lateral lobe that included the neoformation. After two day of convalescence, patient was resigned without complications. Histologic examination of excision relieved a proliferative sclerotic lesion of parotid parenchyma and lymph node. On the other hands, foam macrophages were also relieved. Successive immunohistochemistry examination was positive to Actin and negative for Keratina, S-100, Caldesmone, P-63, Desmine and CD-34. Research for alcohol-acid resistant mycobacterial was negative. The conclusive diagnosis lead to Inflammatory Pseudotumor, probably due to reactive event. After two month of follow-up, patient has not reported compliances due to surgical intervention.*

### Discussion

*Inflammatory pseudotumor can be defined as a localized mass made up of a fibrous stroma and chronic inflammatory infiltrates with a predominance of plasma cells or histiocytes and an absence of anaplasia and mitotic figures (1). It was first described in 1939 by Brunn. It affects more often childhood or early adulthood than adult, with a preference for female and more frequent in non-European population. IPSs can appear in many different parts of the human body, most often reported are lung, liver, spleen and orbit (2,3). It is also known as an inflammatory myofibroblastic tumor, plasma cell granuloma, xanthomatous pseudotumor or inflammatory fibrosarcoma (4). Someren, in 1978, classified IPTs into 3 category based on histological finding:*

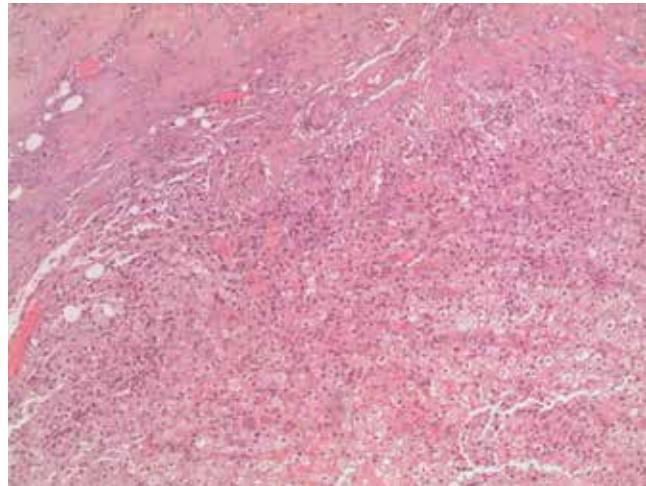
- 1) Xanthogranuloma type (or Histiocytic type) pseudotumors,*
- 2) Plasma cell granuloma type pseudotumors,*
- 3) Sclerotic (or sclerosing granulomatous type) pseudotumors (3,4).*

*Microscopically, lesions are characterized by four typical components: histiocytes, myofibroblasts, plasma cells and lymphocytes. Also, this cellular types are positive for actin, vimentin and CD3. Stromal it's often edematous and with vascularization augmentation. Macroscopically, pseudotumors could emulate a malignancy, manifesting itself as an isolated or multiply lesions, with dimensions starting under 1 cm to 25 cm as top size (4). Ultrasound finding evidence a spherical mass with net edge and without calcification (2). Etiopathogenesis is actually unknown and the main theories about it including inflammatory reaction due to infectious agent, traumatism, ischemia or autoimmune disease (2,4). In particular, Arber et al claim the hypothesis of a parenchymal infection by Epstein-Barr virus leading to IPS (5). On the other hand, Kamisawa et al reported that autoimmune diseases like IgG4 sclerosing cholangitis, could also lead to pseudotumor (6). At head and neck level IPSs have been described involving the orbits, lar-*



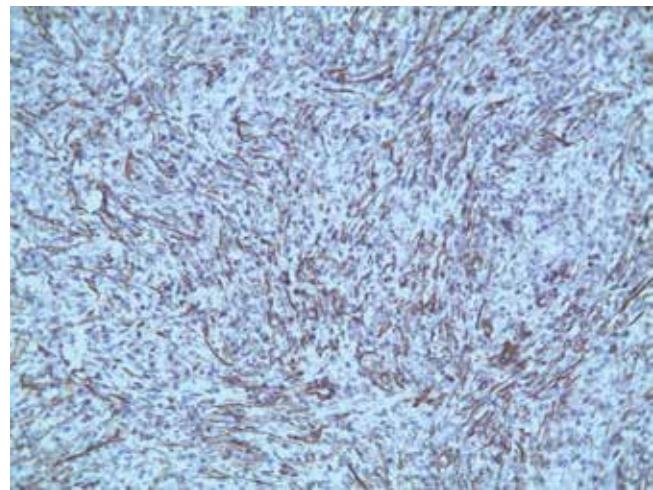
*Fig. 1: Ingrandimento 10x mostra l'infiltato infiammatorio e la fibroproduttiva.*

*Fig. 1: 10x magnification view showing the inflammatory component and proliferative sclerotic lesion.*



*Fig. 2: Ingrandimento a 10x mostra cellule schiumose in aree regressivo-cistiche.*

*Fig. 2: 10x magnification view showing foam cells into cystic-regression areas.*



*Fig. 3: Ingrandimento a 10x mostra la positività alla colorazione con Actina.*

*Fig. 3: 10x magnification view showing positivity to Actin staining.*

zione. Macroscopicamente, lo Pseudotumor può emulare una neoformazione maligna, manifestandosi come una lesione isolata o multifocale, con dimensioni che possono andare da 1 a 25 cm (4). All'ecografia si manifesta come una lesione rotondeggiante dai margini regolari e priva di calcificazioni (2). L'eziopatogenesi è attualmente sconosciuta e le teorie principali includono una reazione infiammatoria dovuta ad un agente infettivo, un traumatismo, una ischemia o un disturbo autoimmune (2,4). In particolare, Arber et al propongono una ipotesi basata su di un'infezione da Epstein-Barr virus del parenchima (5). D'altra parte, Kamisawa et al sostengono che un disturbo autoimmune come la colangite sclerosante IgG4 può altrettanto portare a Pseudotumor (6).

A livello del testa collo sono stati descritti PSI a livello di orbite, laringi, rinofaringe, seni mascellari, ghiando-

ynx, rhinopharynx, Maxillary sinus, thyroid gland and salivary glands, in particular parotid, with only a case in literature about submandibular gland (3,7).

In parotid gland, pseudotumor manifests itself like a parotid swelling. At palpation, it's a hard and nodular lesion that could be associated to later cervical lymphadenopathies, dolor, and systemic symptoms like fever, asthenia and weight loss. On the other hand, facial nerve involvement has never been reported (2,3). In literature, there are not report about positive tumor markers (like  $\alpha$ -fetoproteins, carcinoembryonic antigens, etc.) even in blood analysis also in lesion histologic. Other laboratory finding may be negative, or may show elevated erythrocyte sedimentation rate, C-reactive protein levels elevation and, sometimes, an augmentation of white blood cell count. Clinical finding and CT scan are not usually not conclusive, and differential diagnosis should include other inflammatory disease and malignance. FCNA is not always conclusive so, biopsy is necessary to confirm the diagnosis (1).

Therapy with corticosteroids has an effectiveness unrecognized, with the exception of retro-orbit IPS. The surgical excision is the only curative therapy, with a rarely cases of recidivism (2).

#### **Acknowledgments:**

*Conflict of Interest: The editor in chief has reviewed the conflict of interest checklist provided by the authors and has determined that the authors have no financial or any other kind of personal conflicts with this paper.*

*Author Contributions: Alberto Caranti: acquisition of subject's data, literature search, preparation of manuscript. Andrea Cimatti: original idea, acquisition of subject's data, patient care, literature search, preparation of manuscript, revision for important intellectual content, final supervision.*

*Sponsor's Role: None.*



la tiroide e ghiandole salivari (in particolare la parotide), con un solo caso riportato in letteratura associato a ghiandola sottomandibolare (3,7).

Nella ghiandola parotide, lo pseudotumor si manifesta con una tumefazione della ghiandola. Alla palpazione, la massa è un nodulo duro che può essere associato ad una tumefazione laterocervicale, dolore e sintomi sistematici come febbre, astenia e perdita di peso. D'altra parte, un coinvolgimento del nervo faciale è stato documentato (2,3). In letteratura, non ci sono report che riportino la positività per marker tumorale (come  $\alpha$  fetoproteina, antigeni carcinoembrionali, ecc.), sia a livello ematico che a livello istologico. Altre indagini di laboratorio possono risultare negativi o possono presentare aumento della VES, della PCR e, a volte, un aumento della conta leucocitaria. L'ispezione clinica e la TC non sono conclusivi, ma aprono a diagnosi differenziali fatte con altre patologie infiammatorie o neoplasie maligne. Un FCNA non è sempre conclusivo quindi si rende necessaria una biopsia per confermare la diagnosi (1).

Una terapia con corticosteroidi ha una efficacia non riconosciuta, ad eccezione del PSI retro-orbitario. L'escissione chirurgica è l'unica terapia curativa riconosciuta, con casi di recidiva molto rari (2).

## Bibliografia - References

- 1) Thirumaran N.S. et al. – “Inflammatory pseudotumor of Parotid Gland – a case report” - Journal of Evolution of Medical and Dental Sciences/ Volume 2/ Issue 42/ October 21, 2013;
- 2) Oudidi A. et al. – “Inflammatory pseudotumors of parotid gland. One case study” - La Lettre d'Oto-rhino-laryngologie et de chirurgie cervico-faciale - no 302 - janvier-février – 2006;
- 3) Barrios Sánchez G.M. et al. – “Inflammatory pseudotumor of the parotid gland” - Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2005;10:371-5;
- 4) Zhang Y. et al. – “Inflammatory pseudotumor of the liver: A case report and literature review” - Intractable Rare Dis Res. 2015 Aug; 4(3): 155–158;
- 5) Arber D. et al. – “Frequent presence of the Epstein-Barr virus in inflammatory pseudotumor” – Hum Pathol 1995;26:1093-8;
- 6) Kamisawa T. et al. - “IgG4-related sclerosing disease” - World J Gastroenterol. 2008 Jul 7; 14(25):3948-55.
- 7) Williams S.B. et al. – “Inflammatory Pseudotumors of the Major Salivary Glands. Clinicopathologic and immunohistochemical analysis of six cases.” - Am J Surg Pathol 1992;16:896-902.



## Fatti l'uno per l'altro

Soluzione d'ascolto bimodale Naída



Phonak Naída™ Link è il primo apparecchio acustico specificamente progettato per funzionare con un sistema di impianto cocleare. Naída Link e il processore sonoro Naída CI di Advanced Bionics hanno la capacità unica di comunicare reciprocamente e condividere funzioni automatiche, controlli e accessori.

Il risultato, per il paziente, è una capacità d'ascolto migliorata e con maggiore comfort, anche negli ambienti di ascolto più difficili.

AB e Phonak offrono strumenti ulteriori per rendere il fitting bimodale più facile e efficiente che mai.





Cochlear®

Hear now. And always



# Biofonic Apparecchi acustici



Caserta - Via Roma, 48 Tel. 0823/356680  
Teano - C.so V. Emanuele, 11 Tel 0823/886299

Frattamaggiore - Via Monte Grappa, 22 Tel. 081/19550825  
Casoria - Via Giolitti, 26 Tel. 081/7585599

[www.biofonic.com](http://www.biofonic.com)



CENTRO RICERCHE E STUDI AMPLIFON

I nostri punti di forza  
sono una garanzia  
per i tuoi pazienti



Professionisti



Soluzioni



Metodo



Accessori



Servizi

[www.amplifon.it](http://www.amplifon.it)

NUMERO GRATUITO  
**800 91 08 08**





Azienda Ospedaliera  
"Sant'Anna e San Sebastiano"  
di Caserta  
di rilievo nazionale e di alta specializzazione

U.O. di OTORINOLARINGOIASTRIA

Direttore: Dott. Ortensio Marotta

## Corsi teorico-pratici di tecniche operatorie basiche in Chirurgia Endoscopica Nasosinusale e Microchirurgia Auricolare

*Theoretical-practical course of basic techniques in operating endoscopic Surgery and Microsurgery Sinonasal Headset*

### Programma *Program*

**ore 8,00-9,00** Presentazione dei casi clinici *Presentation of clinical cases*

**ore 9,00-14,00** Sala operatoria *Operating room*

**ore 14,00-14,20** Coffee break *Coffee Break*

**ore 14,20-15,00** Discussione *Discussion*

**ore 15,00-17,00** Training formativo *Training Plan*



SEDE DEL CORSO:  
*COURSE LOCATION:*  
U.O. di Otorinolaringoiatria  
via Palasciano, Caserta

Per informazioni:  
[ortensio.marotta@alice.it](mailto:ortensio.marotta@alice.it)





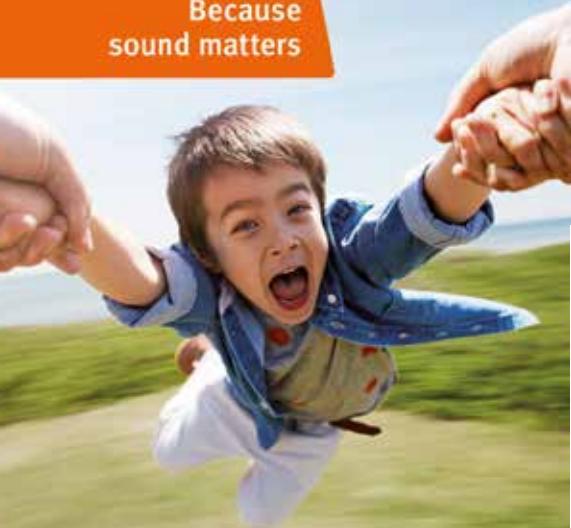
è inserita:

- in DOAJ (*Directory of Open Access Journals*,  
<http://www.doaj.org>)
- nel database mondiale delle riviste on-line
- nell'elenco delle riviste scientifiche italiane
- nel database locale della biblioteca digitale SFX  
(*Sistema Bibliotecario di Ateneo*) a disposizione dell'Università di Napoli "Federico II"
- il titolo "*Frontiera ORL*" è inserito, da tempo, nell'autorevole ACNP (*Archivio Collettivo Nazionale dei Periodici*)

*is included:*

- in DOAJ (*Directory of Open Access Journals*,  
<http://www.doaj.org>)
- in the global database of Italian scientific journal on-line
- in the italian scientific journals
- in the digital library SFX (*university library system*) fully accessible to the University of Naples "Federico II"
- the title "*Frontiera ORL*" is included in the ACNP (*Periodicals Archive National Collective*)

**Because  
sound matters**



Oticon Medical is a global company in implantable hearing solutions, dedicated to bringing the magical world of sound to people at every stage of life. As a member of one of the world's largest groups of hearing health care companies, we share a close link with Oticon and direct access to the latest advancements in hearing research and technologies.



[www.oticonmedical.com](http://www.oticonmedical.com)

Our competencies span more than a century of innovations in sound processing and decades of pioneering experience in hearing implant technology.

By working collaboratively with patients, physicians and hearing care professionals, we ensure that every solution we create is designed with user needs in mind.

We share an unwavering commitment to provide innovative solutions and support that enhance quality of life for people wherever life may take them.

Because we know how much sound matters.

Helping the brain  
make sense  
of sound

**oticon**  
MEDICAL

Frontiera ORL pubblica le migliori esperienze nel campo delle scienze mediche e chirurgiche concernenti soprattutto la patologia testa-collo. Promuove l'interazione tra professionisti sul territorio nazionale e internazionale, oltre che l'organizzazione di corsi e convegni.



Frontier ORL publishes the best experiences in the field of medical sciences and surgical pathology on the head and neck.

Promoting interaction between professionals on national and international territory.

Si ringraziano gli **sponsor** che hanno dimostrato interesse e fiducia nel progetto,  
offrendo il proprio prezioso contributo.

Il materiale pubblicato è visionabile on line all'indirizzo [www.frontieraorl.it](http://www.frontieraorl.it)

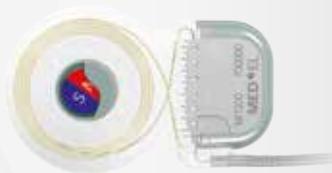
*Thanks to the sponsors who proved their interest and trust in this project,  
offering their own contribuition.*

*Materials can be consulted at [www.frontieraorl.it](http://www.frontieraorl.it)*

## Impianto Cocleare SYNCHRONY® Pronto per il futuro

SYNCHRONY è l'unico impianto che consente di effettuare risonanze magnetiche a 3.0 Tesla senza la rimozione del magnete. Il magnete autoallineante riduce notevolmente la torsione dell'impianto garantendo un comfort e una sicurezza superiori.

**MED-EL**



\* I pazienti con un impianto cocleare SYNCHRONY possono sottoporsi con maggiore sicurezza a risonanze magnetiche a 0,2, 1,0, 1,5 e 3,0 Tesla, in base alle dettagliate condizioni descritte nelle istruzioni d'uso.