

© Team of authors, 2024 / © Коллектив авторов, 2024

3.1.2. Maxillofacial surgery, 3.1.3. Otorhinolaryngology, 3.3.3. Pathological physiology /

3.1.2. Челюстно-лицевая хирургия, 3.1.3. Оториноларингология, 3.3.3. Патологическая физиология

## Salivary gland choristoma of the middle ear: a case report and review of the literature

G.V. Vlasova, P.V. Pavlov, A.Sh. Karimov

Federal State Budgetary Educational Institutional of Higher Education St. Petersburg State Pediatric Medical University, St. Petersburg, Russia

Contacts: Galina Vladimirovna Vlasova – e-mail:galinav71@mail.ru

## Хористома слюнной железы в барабанной полости: клиническое наблюдение и обзор литературы

Г.В. Власова, П.В. Павлов, А.Ш. Каримов

ФГБОУ ВО Санкт-Петербургский государственный педиатрический медицинский университет Минздрава РФ, Санкт-Петербург, Россия

Контакты: Власова Галина Владимировна – e-mail:galinav71@mail.ru

## 鼓室内涎腺异位瘤：临床观察与文献综述

G.V. Vlasova, P.V. Pavlov, A.Sh. Karimov

俄罗斯联邦卫生部圣彼得堡国立儿科医学大学，圣彼得堡，俄罗斯

联系方式: Vlasova Galina Vladimirovna – 邮箱: galinav71@mail.ru

The review summarizes the current knowledge on salivary gland choristoma of the middle ear, its clinical manifestations, diagnostics, and features of surgical treatment. Being a form of heterotopia, choristoma represents a histologically normal tissue located in an unusual place, in an organ or region where it is normally absent. According to modern concepts, salivary gland choristoma of the middle ear is a malformation of the second branchial arch. It is formed before the fourth month of fetal development, which probably explains the frequent combination of salivary gland choristoma with developmental anomalies of the stapes, incus, and facial nerve canal. Choristoma is an extremely rare congenital ear pathology with about 50 reports in the scientific medical literature. Choristoma does not have specific clinical symptoms or characteristic CT and MRT features. Therefore, it cannot be diagnosed preoperatively. The only way to verify the diagnosis is pathological assessment. According to the literature data regarding salivary gland choristoma of the middle ear, the disease is more common in women (male to female ratio 1:1.7), and left-sided localization is predominant. The age range at diagnosis is broad, from 3 to 52 years. Manifestations includes conductive hearing loss, otalgia, otorrhea, dizziness, vertigo, tinnitus, facial nerve paresis. Otoscopy reveals a white or yellow-red colored mass behind the intact tympanic membrane. Intraoperative findings show a smooth, dense, lobular mass in the tympanic cavity attached to the horizontal part of the facial nerve canal, dystopia and dehiscence of the canal, malformations of the incus, stapes, and labyrinth openings. The proximity and attachment of choristoma with the facial nerve canal makes its total removal impossible due to the risk of the facial nerve damage in some cases. In these cases, biopsy of the mass, pathological assessment, and further follow-up of the patient are performed. Choristoma is considered to have a favorable prognosis, since there is no tendency to further growth and malignization after surgery.

**Clinical case.** We present a clinical observation of salivary gland choristoma in the tympanic cavity in a 6-year-old boy, quite typical in terms of its clinical manifestations: conductive hearing loss, a mass visualized behind the tympanic membrane, recurrent otalgia. CT of the temporal bones revealed a soft tissue mass in the right tympanic cavity adjacent to the facial nerve canal, dystopia and dehiscence of the fallopian canal. We performed a biopsy of the lesion, followed by pathological examination, as complete removal of the choristoma carried a high risk for facial nerve function. We refrained from revision and reconstruction of the ossicular chain due to the inaccessibility of the posterior parts of the tympanic cavity and dystopia of the fallopian canal. This strategy is not inconsistent with the tactics described in literature. During the 2.5-year follow-up period since surgery, no growth of the mass was observed. The patient currently remains under otorhinolaryngologist supervision.

**Keywords:** choristoma, salivary gland, middle ear, malformation of the middle ear

**Conflicts of interest.** The authors have no conflicts of interest to declare.

**Funding.** There was no funding for this study

**For citation:** Vlasova G.V., Pavlov P.V., Karimov A.Sh. Salivary gland choristoma of the middle ear: a case report and review of the literature. *Head and neck. Russian Journal.* 2024;12(4):125–133

**Doi:** 10.25792/HN.2024.12.4.125-133

The authors are responsible for the originality of the data presented and the possibility of publishing illustrative material – tables, drawings, photographs of patients.

В обзоре освещены современные представления о хористоме слюнной железы (СЖ) в барабанной полости (БП), ее клинических проявлениях, диагностике и особенностях хирургического лечения. Являясь одной из форм гетеротопии, хористома гистологически представляет собой нормальную ткань, расположенную в необычном месте, т.е. в органе или области органа, где в норме она отсутствует. Согласно современным представлениям, хористома СЖ в полости среднего уха является пороком развития второй жаберной дуги и формируется до 4-го месяца внутриутробного развития, что, вероятно, объясняет частое сочетание хористомы СЖ с аномалиями развития стремени, наковальни и канала лицевого нерва (ЛН). Являясь крайне редкой врожденной патологией уха, о которой в научной литературе имеется около 50 сообщений, хористома не имеет специфических клинических симптомов и характерных КТ и МРТ признаков. Поэтому ее диагностика на дооперационном этапе не представляется возможной. Единственный способ установить диагноз – это гистологическое исследование. Обобщая данные литературы относительно хористомы СЖ в БП, можно отметить более высокую частоту этого заболевания у женщин (соотношение мужчин и женщин 1:1,7), а также преобладание левосторонней локализации. Возрастной диапазон установления диагноза достаточно широкий, от 3 до 52 лет. Клиническая картина характеризуется кондуктивным снижением слуха, оталгией, отореей, головокружением, ушным шумом, парезом ЛН. А отоскопическая картина выявляет образование белого или желто-красного цвета за целой барабанной перепонкой. Интраоперационные находки описываются как гладкое, плотное, дольчатое образование в БП, тесно связанное с горизонтальной частью канала ЛН, в сочетании с его дистопией, дегисценциями, а также с аномалиями развития наковальни, стремечка и окон лабиринта. Близость и связь хористомы с каналом ЛН в целом ряде случаев делает невозможным ее тотальное удаление из-за риска повреждения ЛН. В этих случаях выполняется биопсия образования, гистологическое исследование и дальнейшее наблюдение пациента. Считается, что хористома имеет благоприятный прогноз, т.к. после операции не склонна к дальнейшему росту и малигнизации.

**Клинический случай.** Представленное клиническое наблюдение хористомы СЖ в БП у мальчика 6 лет вполне типично по своим клиническим проявлениям, а именно: кондуктивное снижение слуха, визуализируемое за барабанной перепонкой образование, периодическая оталгия. МСКТ височных костей выявило мягкотканное образование в правой БП, прилежащее к каналу ЛН, дистопию и дегисценции фаллопиева канала. Учитывая высокий риск тотального удаления хористомы для функции лицевого нерва, мы выполнили биопсию образования, с последующим гистологическим исследованием, а также воздержались от ревизии и реконструкции цепи слуховых косточек по причине труднодоступности задних отделов барабанной полости из-за дистопии фаллопиева канала. Такое решение не противоречит тактике, описанной в литературе. За 2,5-летний период наблюдения с момента операции, рост образования не наблюдался. Пациент остается под наблюдением оториноларинголога до настоящего момента.

**Ключевые слова:** хористома, слюнная железа, среднее ухо, порок развития среднего уха

**Конфликт интересов.** Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

**Финансирование.** Работа выполнена без спонсорской поддержки.

**Для цитирования:** Власова Г.В., Павлов П.В., Каримов А.Ш. Хористома слюнной железы в барабанной полости: клиническое наблюдение и обзор литературы. *Head and neck. Голова и шея. Российский журнал.* 2024;12(4):125–133

**Doi:** 10.25792/HN.2024.12.4.125-133

Авторы несут ответственность за оригинальность представленных данных и возможность публикации иллюстративного материала – таблиц, рисунков, фотографий пациентов.

**摘要:** 本文综述了涎腺异位瘤 (choristoma) 在鼓室内的现代研究进展, 包括其临床表现、诊断及手术治疗特点。作为一种异位组织病变, 异位瘤的组织学特征为正常组织位于异常解剖位置, 即在正常情况下不存在该组织的部位。根据现有研究, 鼓室内涎腺异位瘤是第二鳃弓发育异常的结果, 形成于胚胎发育的第4个月。这一机制可能解释了涎腺异位瘤常伴镫骨、砧骨及面神经管发育异常的现象。

鼓室内涎腺异位瘤是一种极为罕见的先天性耳部疾病, 文献中仅有约50例报道。其临床症状缺乏特异性, 影像学 (CT和MRI) 表现也无特征性, 因此术前诊断极为困难。确诊需依赖术后组织学检查。文献数据显示, 该病在女性中更为常见 (男女比例为1:1.7), 且多见于左侧。确诊年龄范围较广, 从3岁至52岁不等。

**临床表现:** 患者通常表现为传导性听力下降、耳痛、耳漏、眩晕、耳鸣及面神经麻痹。耳镜检查可见完整鼓膜后方的白色或黄红色肿块。术中常发现肿块为光滑、致密、分叶状, 位于鼓室内, 与面神经管水平段紧密相连, 伴有面神经管异位、骨质缺损, 以及砧骨、镫骨及迷路窗发育异常。由于肿瘤与面神经管的紧密关系, 部分病例中无法完全切除肿瘤, 以避免面神经损伤。在此情况下, 通常采取肿瘤活检、组织学检查及术后随访的策略。

**预后:** 涎腺异位瘤预后良好, 术后通常不再生长, 也无恶变倾向。

临床病例：本文报道了一例6岁男童的典型病例。患者表现为传导性听力下降、鼓膜后方可见肿块及间歇性耳痛。颞骨MSCCT显示右侧鼓室内软组织肿块，紧邻面神经管，伴面神经管异位及骨质缺损。由于肿瘤与面神经管关系密切，手术中未进行肿瘤全切，仅取活检组织进行病理检查，同时未对听骨链后部进行修复。术后随访2.5年，未见肿瘤生长。患者目前仍在耳鼻喉科医生的随访中。

关键词：异位瘤，涎腺，中耳，中耳发育异常

利益冲突声明：作者声明不存在利益冲突。

资助声明：本研究未获得任何资助支持。

引用格式：Vlasova G.V., Pavlov P.V., Karimov A.Sh. Salivary gland choristoma of the middle ear: a case report and review of the literature. *Head and neck. Russian Journal.* 2024;12(4):125–133

Doi: 10.25792/HN.2024.12.4.125-133

作者声明：作者对所提供数据的原创性及插图（表格、图片、患者照片）的发表合法性负责。

## Обзор литературы

Информация о гетеротопии слюнных желез (СЖ) в различные органы представлена в научной медицинской литературе в виде одиночных клинических наблюдений, описываемых авторами, которым довелось увидеть эту весьма редкую патологию.

Гетеротопия (нетипичное расположение) – закладка органа у зародыша в необычном месте, в котором и происходит его дальнейшее развитие [1]. В случае гетеротопии СЖ в литературе наиболее часто используется термин хористома (choristos) – отделимый, обособленный, который был предложен немецким патологоанатомом Eugen Albrecht в 1904 г. [2]. Являясь одной из форм гетеротопии, хористома гистологически представляет собой нормальную ткань или группу клеток, расположенную в необычном месте, т.е. в органе или области органа, где в норме они отсутствуют. Описаны случаи гетеротопии тканей СЖ в гортани [3], головном мозге [4], в области бифуркации общей сонной артерии [5], в толще нижней челюсти [6,7], во внутреннем слуховом проходе [8], в среднем ухе [9].

По данным англоязычной литературы, хористома СЖ в полости среднего уха впервые была описана G. Taylor и H. Martin в 1961 г. [10], и, как считают K. Ziari и K. Alizadeh, с тех пор и до 2016 г. в научной медицинской литературе описан всего лишь 41 случай хористомы СЖ в среднем ухе [11].

Тем не менее описания эктопии СЖ различных локализаций встречаются в монографии приват-доцента Императорской Военно-медицинской академии А.А. Опокина «Повреждения и заболевания слюнных желез» и датируются 1912 г. [12]. В главе «Эмбриологическая замечания» автор объясняет гетеротопию СЖ нарушениями развития жаберных дуг и рассматривает как порок развития. А.А. Опокин отмечает, что первые зачатки СЖ появляются на 6–8-й неделях эмбрионального периода. А на 12–15-й неделях *gl. submaxillaris* и *gl. parotis* располагаются очень близко к костным зачаткам нижней челюсти, к ее перистости и зачаткам барабанной перепонки. Отграничение и инкапсулирование СЖ в эмбриональной жизни идет много позже, чем формирование железистых элементов, а «сами железистые элементы блуждают среди соседних элементов (клеток периоста, барабанной перепонки и т.д.)». Таким образом, создаются условия для возникновения в будущем опухолей из «заблудших зачатков» [12].

Согласно современным представлениям, хористома СЖ в полости среднего уха является пороком развития второй жаберной дуги и формируется до 4-го месяца внутриутробного развития [13, 14]. P.R. Purnell и соавт. (2019) считают, что первая и вторая жаберные дуги являются источниками формирования нижней челюсти и цепи слуховых косточек. Это, по их мнению, объясняет гетеротопию СЖ в нижнюю челюсть и барабанную полость (БП), а также частое сочетание хористомы СЖ с аномалиями развития стремени, наковальни и канала лицевого нерва (ЛН) [15]. В литературе в качестве операционных находок описываются аномалии суперструктур стремени, овального окна, длинного отростка наковальни, смещение канала ЛН, его дегисценции; близкое расположение хористомы к фаллопиеву каналу и, в целом ряде случаев, неразрывная связь образования с самим ЛН; отсутствие стремени и круглого окна [16–20].

J.M. Kartush и соавт. (1984), анализируя операционные находки 12 случаев хористомы СЖ среднего уха, отмечают в 11 случаях патологию наковальни (отсутствие наковальни – 4, мальформация – 7), патологию стремени в 11 случаях (отсутствие – 5, мальформация – 4, прикрыто образованием – 2). В 2 случаях выявлена облитерация овального окна. Высокий риск тотального удаления хористомы и столь серьезная патология звукопроводящей системы среднего уха только в 3 случаях из 12 позволила выполнить оссикулопластику с улучшением слуха у двух пациентов. Анализ состояния горизонтального отдела канала ЛН в 100% выявил патологию: дегисценции – 7, дислокация (смещение книзу на промонториум) – 3, канал, полностью прикрытый образованием – 2. Столь близкое расположение хористомы к каналу ЛН при удалении образования в послеоперационном периоде привело к нарушению функции ЛН у 3 пациентов, у одного из них – к стойкому [21].

Обобщая данные литературы относительно эктопии СЖ в БП, можно отметить более высокую частоту этого заболевания у женщин (соотношение мужчин и женщин 1:1,7), а также преобладание левосторонней локализации. Возрастной диапазон установления диагноза достаточно широкий, от 3 до 52 лет [21–23].

Поводом для обращения к врачу в большинстве случаев является одностороннее снижение слуха [24, 25]. Анализ данных литературы показал, что при исследовании слуха у 93,6% пациентов выявили среднюю и тяжелую степени тугоухости кондуктивного или смешанного типа [26]. В ряде случаев клини-



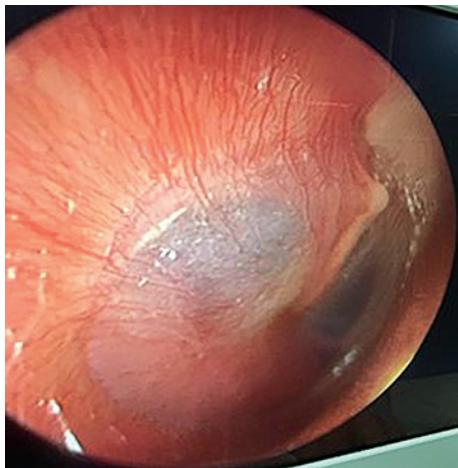


Рис. 1. Эндоскопическая фотография правой барабанной перепонки больного С., 6 лет, до операции на ухе

Через барабанную перепонку просвечивает розоватое образование, расположенное в нижнем отделе БП, инъекция сосудов по рукоятке молоточка.

Figure 1. Endoscopic photograph of the right tympanic membrane, patient S., 6 years old, before the operation on the middle ear

The pink mass is visible through the tympanic membrane in the lower parts of the tympanic cavity. Capillary network is visible on the manubrium mallei.

ческая картина также может включать в себя оталгию, оторею, головокружение, ушной шум, парез ЛН [27, 28].

При отоскопии за барабанной перепонкой может быть визуализировано образование белого [29] или желто-красного [30] цвета за интактной барабанной перепонкой. Описан случай нормальной отоскопической картины [31], а также перфорации перепонки с гнойными выделениями [32]. В качестве интраоперационных находок описывается плотное, эластичное дольчатое образование в задневерхних отделах БП в области горизонтального канала ЛН, часто на ножке [33].

Проводя мета-анализ клинических наблюдений хористомы СЖ в среднем ухе, опубликованных в литературе, S.S. Gómez и соавт. (2013) в 40% случаев выявили связь образования с каналом ЛН. В связи с этим полное удаление хористомы не всегда представляется возможным из-за риска повреждения ЛН. В таких случаях авторы рекомендуют частичное иссечение образования и дальнейшее наблюдение [34]. Тотальное удаление возможно только в том случае, если нет риска повреждения ЛН [35]. Проведение дифференциальной диагностики хористомы СЖ по клинической картине и операционному материалу практически невозможно. Сходная клиническая симптоматика может наблюдаться при гранулеме, холестеатоме, параганглиоме, невриноме, рабдомиосаркоме, метастазах, гамартоме, тератоме, нейроглиальной хористоме. Гистологическое исследование – единственный способ установить диагноз [34, 36–39].

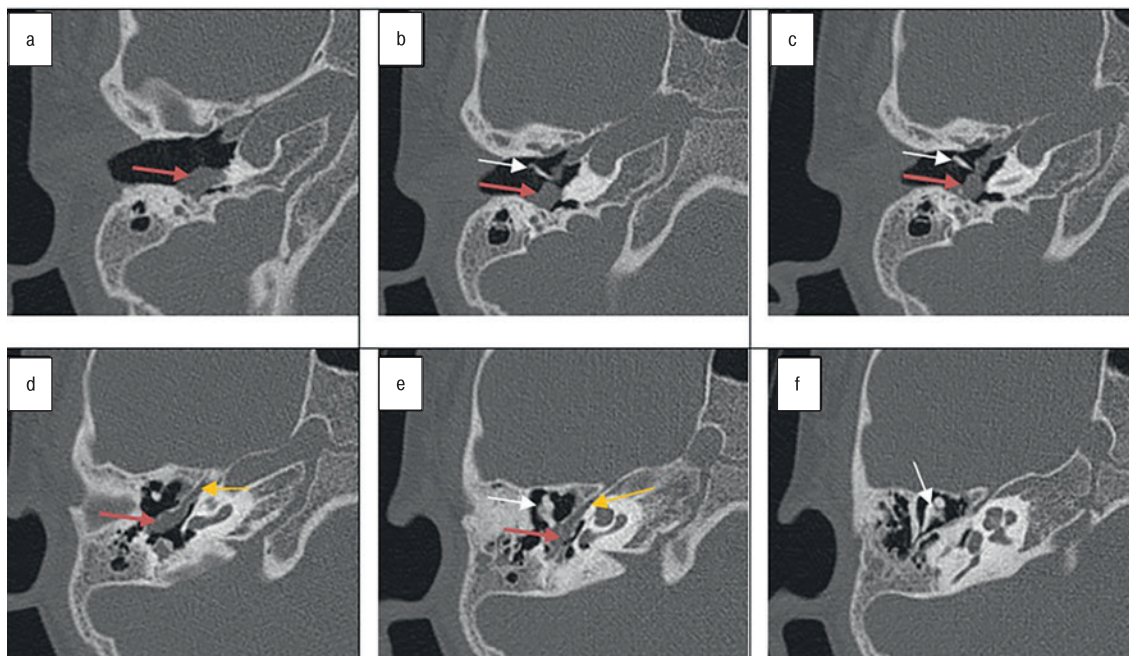


Рис. 2. КТ-изображения правой височной кости пациента С., 6 лет, до операции на ухе (аксиальная проекция)

а – мягкотканное образование в гипотимпануме (красная стрелочка); б – мягкотканное образование в мезотимпануме (красная стрелочка), рукоятка молоточка (белая стрелочка); в – мягкотканное образование в мезотимпануме (красная стрелочка), рукоятка молоточка (белая стрелочка); д – мягкотканное образование в эпитимпануме (красная стрелочка), канал ЛН (желтая стрелочка); е – мягкотканное образование в эпитимпануме (красная стрелочка), канал ЛН (желтая стрелочка), слуховые косточки: тело наковальни, головка молоточка (белая стрелочка); ф – тело наковальни, головка молоточка (белая стрелочка).

Figure 2. CT-scans of the right temporal bone, patient S., 6 years old, before the operation on the middle ear (axial plane). а – soft tissue mass in the hypotympanum (red arrow); б – soft tissue mass in the mesotympanum (red arrow), manubrium mallei (white arrow); в – soft tissue mass in the mesotympanum (red arrow), manubrium mallei (white arrow); д – soft tissue mass in the epitympanum (red arrow), facial nerve canal (yellow arrow); е – soft tissue mass in the epitympanum (red arrow), facial nerve canal (yellow arrow), body of incus and capitulum mallei (white arrow); ф – body of incus and capitulum mallei (white arrow).

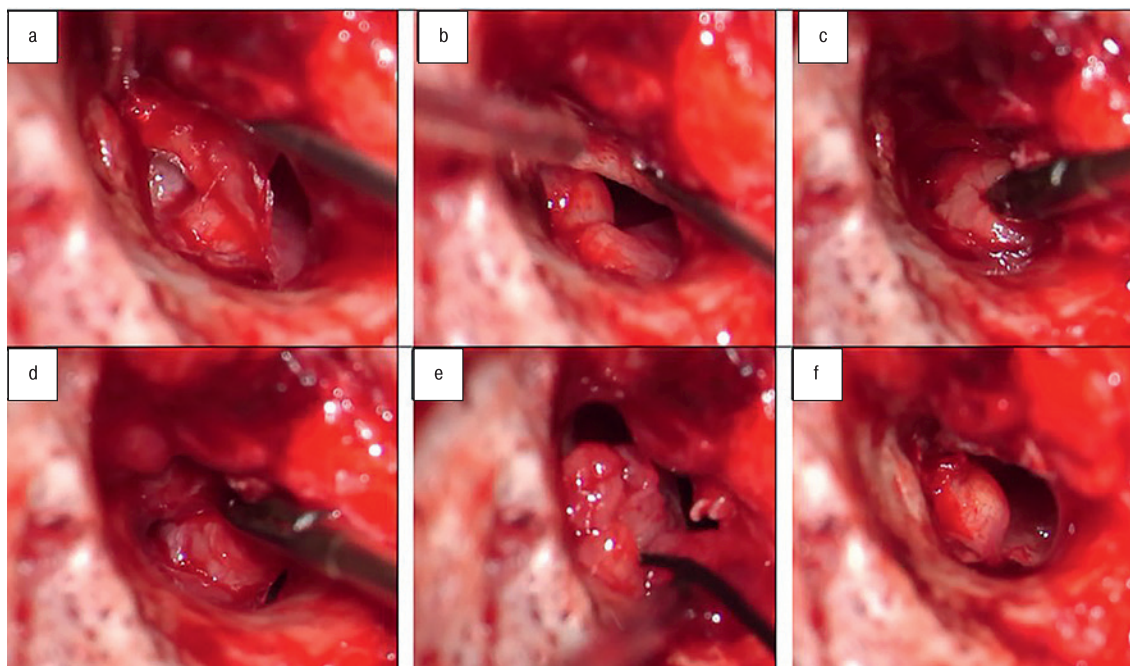


Рис. 3. Фотоизображения операционного поля, полученные с помощью операционного микроскопа (3,5-кратное увеличение) во время операции на правом ухе

Этапы операции: а – барабанная перепонка частично отсепарована, мягкотканное образование, заполняющее задние отделы БП; б – барабанная перепонка отсепарована. Мягкотканное образование плотно прилежит к промоторию и барабанной перепонке. Образование практически полностью заполняет БП, имеет красноватый оттенок и простирается кпереди до отверстия слуховой трубы; с, d, e – часть мягкотканного образования, не прилежащая к промоторию, отсепарована и извлечена из БП с помощью микрохирургических инструментов; f – часть образования плотно прилежит к медиальной стенке БП закрывает овальное окно и канал ЛН. Удаление невозможно.

Figure 3. Operating field view (operating microscope, 3.5 magnification). Operation on the right ear

Operation stages: a – the tympanic membrane is partially separated. The mass fills the posterior parts of the tympanic cavity; b – the tympanic membrane is separated. A mass adherent to the mucosa of the promontorium and tympanic membrane is found. The mass fully fills the cavity, is reddish in appearance, and extends anteriorly to the Eustachian tube orifice; c, d, e – the part of the mass not adjacent to the promontorium mucosa is separated and removed from the tympanic cavity using microsurgical instruments; f – a part of the elastic mass is tightly attached to the medial wall of the tympanic cavity, closes the oval window and the canal of the facial nerve. Removal is not possible.

## Клинический случай

Мальчик С., 6 лет поступил в ЛОР-отделение СПбГМУ с жалобами на рецидивирующие острые средние отиты справа (1 эпизод каждый месяц в течение последнего года), сопровождающиеся выраженным болевым синдромом, снижение слуха справа. Гноетечений из правого уха не было. Получал консервативное лечение отитов амбулаторно (антибактериальная терапия, обезболивание). Аудиометрия, выполненная по месту жительства, выявила 2-ю степень кондуктивной тугоухости справа и норму слуха слева. При отоскопии за правой барабанной перепонкой визуализировано образование, которое было расценено как холестеатома. Ребенок был направлен на хирургическое лечение.

В отделении ребенку были выполнены следующие исследования: 1) отомикроскопия справа: образование розового цвета за барабанной перепонкой (рис. 1); 2) тональная пороговая аудиометрия: правосторонняя кондуктивная тугоухость II степени (средняя потеря слуха 44 дБ), слева – норма слуха; 3) тимпанометрия: тип А тимпаногаммы с обеих сторон; 4) электронейромиография: признаков нарушения по периферическим волокнам правого и левого ЛН на момент исследования нет;

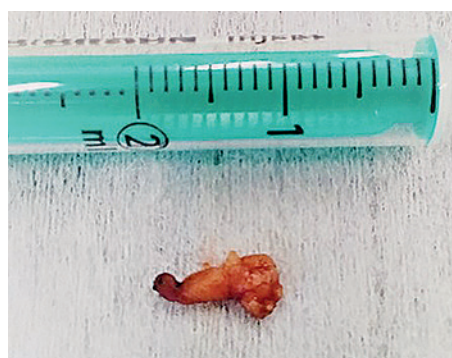


Рис. 4. Фотоизображение плотного эластичного красноватого образования, 13 мм в длину, удаленного из БП.

Figure 4. Photography of the elastic reddish mass, 13 mm in length, removed from the tympanic cavity.

проведение по путям мигательного рефлекса справа и слева без признаков замедления и асимметрии; 5) магнитно-резонансная томография (МРТ) височных костей по протоколу выявления холестеатомы с использованием DWI режима: МР-признаков



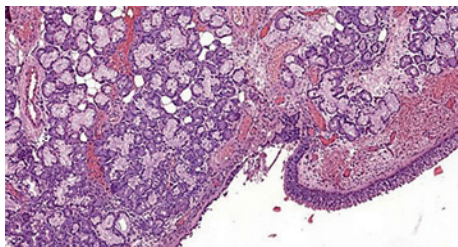


Рисунок 5. Гистологический препарат. Нормальная ткань слюнной железы (окраска: гематоксилин-эозин, x 100).

Figure 5. Pathology specimen. Normal tissue of the salivary gland (staining: hematoxylin-eosin, x 100).

холестеатомы не выявлено; 6) мультиспиральная компьютерная томография (МСКТ) височных костей: мягкотканное образование в правой БП, прилежащее к каналу ЛН, дистопия и дегисценции фаллопиева канала справа (рис. 2); 7) осмотр невролога: патологии не выявлено.

Пациенту была выполнена тимпанотомия справа с использованием операционного микроскопа. В задних отделах БП на медиальной стенке обнаружено взбухающее образование, при ощупывании аттиковым зондом частично костной плотности, частично мягкое, белесоватое. Окно преддверия и стремя не визуализировались из-за наличия патологических тканей.

Образование продолжалось книзу в ретротимпальный синус, далее распространялось в гипотимпанум к передним отделам БП до отверстия слуховой трубы. Часть образования, свободно лежащая в гипотимпануме, извлечена из нижних отделов БП до уровня фиксации к единому конгломерату. С помощью микрохирургической иглы и отсоса подвижная часть образования удалена (рис. 3). Размеры удаленного фрагмента составили около 13 мм (рис. 4).

На основании гистологического исследования операционного материала (рис. 5) ребенку установлен диагноз: «Порок развития среднего уха. Хористомы СЖ в БП».

Повторное обследование пациента было проведено через 1 год после хирургического вмешательства. При отоскопии определялся небольшой центральный дефект барабанной перепонки справа, через который визуализировалась часть БП и медиальной стенки без патологических тканей. На МСКТ височных костей обнаружено мягкотканное образование в правой БП, прилежащее к каналу ЛН, дистопия и дегисценции фаллопиева канала справа. Гипо- и мезотимпанум были воздушны (рис. 6).

Признаков роста образования не было. Через два года с момента удаления хористомы пациенту выполнено закрытие дефекта барабанной перепонки, без вмешательства на цепи слуховых косточек из-за крайне затруднительной ее визуализации (дистопия канала ЛН). Пороги слуха после проведенных вмешательств на ухе остались без изменений.

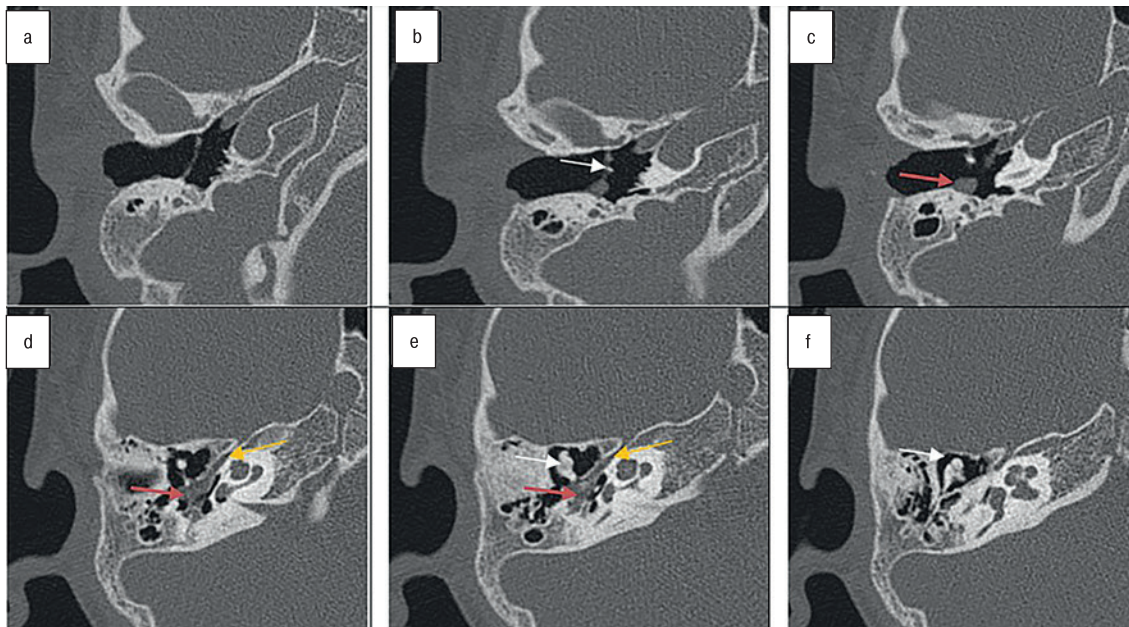


Рис. 6. КТ-изображения правой височной височной кости пациента С., 6 лет, после операции на ухе (аксиальная проекция) а – гипотимпанум пневматизирован; b – мезотимпанум пневматизирован, рукоятка молоточка (белая стрелочка); c – небольшое мягкотканное образование в мезотимпануме (красная стрелочка); d – мягкотканное образование в эпитимпануме (красная стрелочка), канал ЛН (желтая стрелочка); e – мягкотканное образование в эпитимпануме (красная стрелочка), канал ЛН (желтая стрелочка); тело наковальни, головка молоточка (белая стрелочка); f – тело наковальни и головка молоточка (белая стрелочка).

Figure 6. CT-scans of the right temporal bone, patient S., 6 years old, after the operation on the middle ear (axial plane) a – normally pneumatized hypotympanum; b - normally pneumatized mesotympanum, manubrium mallei (white arrow); c – small soft tissue mass in the mesotympanum (red arrow); d – soft tissue mass in the epitympanum (red arrow), facial nerve canal (yellow arrow); e – soft tissue mass in the epitympanum (red arrow), facial nerve canal (yellow arrow), body of incus and capitulum mallei (white arrow); f – body of incus and capitulum mallei (white arrow).

## Обсуждение

Хористомы СЖ в БП является крайне редкой патологией [40]. Настолько редкой, что за период с 1961 по 2021 г. в научной литературе опубликовано всего 48 сообщений об этой патологии в виде клинических наблюдений [41]. Но и эти немногочисленные сообщения дают определенное представление о клинической картине и течении заболевания.

Представленное клиническое наблюдение хористомы СЖ в БП у мальчика 6 лет вполне типично по своим клиническим проявлениям, а именно: кондуктивное снижение слуха, визуализируемое за барабанной перепонкой образование, периодическая оталгия. Однако отсутствие специфических симптомов, указывающих на хористому, не дало возможности диагностировать заболевание на этом этапе.

Проведенная пациенту МСКТ височных костей выявила мягкотканное образование в БП с четкими контурами, прилежащее к фаллопиеву каналу, и, очевидно, имеющее связь с самим ЛН через дегисценцию костной стенки. Для дифференциальной диагностики этого мягкотканного образования БП пациенту была проведена МРТ по протоколу выявления холестеатомы с использованием pop-eri DWI режима. Результаты этого исследования позволили на дооперационном уровне исключить диагноз холестеатомы и холестериновой гранулемы [42–45]. Диагностика хористомы СЖ на дооперационном этапе не представлялась возможной из-за отсутствия специфических клинических симптомов, а также патогномичных КТ и МРТ признаков [46].

Проведенный мета-анализ данных литературы, показал схожие во многом операционные находки. Авторы описывают гладкое, плотное, дольчатое образование в БП, тесно связанное с горизонтальной частью канала ЛН, в сочетании с аномалией наковальни и стремечка [47]. Близость и связь хористомы с каналом ЛН в целом ряде случаев, в т.ч. и в нашем наблюдении, делает невозможным ее тотальное удаление. Дистопия фаллопиева канала, его смещение книзу на медиальной стенке БП у нашего пациента значительно ограничило визуализацию ретротимпанального синуса, цепи слуховых косточек и окон лабиринта. Учитывая высокий риск тотального удаления хористомы для функции ЛН, мы выполнили биопсию образования, с последующим гистологическим исследованием, а также воздержались от ревизии и реконструкции цепи слуховых косточек, что не противоречит предлагаемой в литературе тактике [47–49]. По окончании вмешательства был визуализирован незначительный (1–2 мм) дефект в задненижних отделах барабанной перепонки. В связи с отсутствием на момент окончания операции гистологически верифицированного диагноза и, следовательно, представления о прогнозе заболевания, одномоментная тимпанопластика не проводилась. Период наблюдения с момента операции и гистологического установления диагноза хористомы составил 2,5 года. В литературе имеются единичные сообщения о росте хористомы и последующем развитии новообразования [50], однако в нашем наблюдении этого не было. Через 2 года с момента удаления хористомы выполнено закрытие дефекта барабанной перепонки. Пациент остается под наблюдением оториноларинголога до настоящего момента.

## Заключение

Хористомы СЖ в БП – крайне редкий порок развития среднего уха, часто сопровождающийся аномалией канала ЛН и мальформацией слуховых косточек. Правильный диагноз можно установить только после гистологического исследования.

## ЛИТЕРАТУРА/REFERENES

1. Калмин О. В., Калмина О.А. Аннотированный перечень аномалий развития органов и частей тела человека. Учебно-методическое пособие. Пенза, 2000. 192 с. [Kalmin O.V., Kalmina O.A. Annotated list of anomalies in the development of organs and parts of the human body: Educational and methodological manual. Penza, 2000. 192 p. (In Russ.)].
2. Патологоанатомическая диагностика опухолей человека. Под ред. Н.А. Краевского, А.В. Смольяникова, Д.С. Саркисова. Руководство для врачей в 2 томах. М., 1993. 560 с. [Pathological diagnosis of human tumors. Ed. by N.A. Kraevsky, A.V. Smolyannikov, D.S. Sarkisov. Guide for physicians in 2 volumes. M., 1993. 560 p. (In Russ.)].
3. Рябова М.А., Шумилова Н.А. Случай гетеротопии слюнных желез в гортани. *Folia Otorhinolaryngol. Pathol. Respir.* 2018;24(1):77–83. [Ryabova M.A., Shumilova N.A. Salivary gland heterotopia in the larynx. *Folia Otorhinolaryngol. Pathol. Respir.* 2018;24(1):77–83 (In Russ.)].
4. Curry B., Taylor C.W., Fisher A.W. Salivary gland heterotopia: a unique cerebellopontine angle tumor. *Arch. Pathol. Lab. Med.* 1982;106(1):35–8.
5. Gudbrandsson F.K., Liston S.L., Maisel R.A. Heterotopic salivary tissue in the neck. *Otolaryngol. Head Neck Surg.* 1982;90(3 Pt. 1):279–82.
6. Dorman M., Piersie D. Ectopic salivary gland tissue in the anterior mandible: a case report. *Br. Dent. J.* 2002; 93:571–2. Doi: 10.1038/sj.bdj.4801629.
7. Pesavento G., Ferlito A. Benign mixed tumour of heterotopic salivary gland tissue in upper neck. Report of a case with a review of the literature on heterotopic salivary gland tissue. *J. Laryngol. Otol.* 1976;90(6):577–84. Doi: 10.1017/s0022215100082475.
8. Диаб Х.М., Дайхес Н.А., Сайдулаев В.А. и др. Хористомы внутреннего слухового прохода: обзор литературы. *Оториноларингология. Восточная Европа.* 2022;12(1):58–64. Doi: 10.1017/s0022215100082475. [Diab Kh.M., Daikhes N.A., Saidulaev V.A., et al. Choristoma of the internal auditory canal: literature review. *Otorinolaringologiya. Vostochnaya Evropa.* 2022;12(1):58–64 (In Russ.)].
9. Bottrill I.D., Chawla O.P., Ramsay A.D. Salivary gland choristoma of the middle ear. *J. Laryngol. Otol.* 1992;106(7):630–2. Doi: 10.1017/S0022215100120389.
10. Taylor G.D., Martin H. Salivary gland tissue in the middle ear. A rare tumor. *Arch. Otolaryngol.* 1961;73(6):651–3. Doi: 10.1001/archotol.1961.00740020665006.
11. Zari K., Alizadeh K. Middle Ear Salivary Gland Choristoma: A Case Report. *Iran J. Pathol.* 2016;11(5):461–4.
12. Опокин А.А. Повреждения и заболевания слюнных желез. Издательство «Практическая медицина» (В.С. Эттингер). СПб., 1912. 72 с. [Opokin A.A. Injuries and diseases of the salivary glands. Publishing House “Practical Medicine” (V.S. Ettinger). St. Petersburg, 1912. 72 p. (In Russ.)].
13. Namdar I., Smouha E.E., Kane P. Salivary gland choristoma of the middle ear: role of intraoperative facial nerve monitoring. *Otolaryngol. Head Neck Surg.* 1995;112(4):616–20. Doi: 10.1177/019459989511200421.
14. Agha R.A., Borrelli M.R., Farwana R., et al. The SCARE 2018 statement: updating consensus surgical CAse REport (SCARE) guidelines. *Int. J. Surg.* 2018;60:132–6. Doi: 10.1016/j.ijsu.2018.10.028.
15. Purnell P.R., Interval E., Williams H.J., Cassis A. Middle ear choristoma presenting as cholesteatoma with conductive hearing loss. *J. Surg. Case Rep.* 2019;27(4):129. Doi: 10.1093/jscr/rjz129.
16. Young A., Evans L., Ng M. Middle ear salivary choristoma: a rare case report and update on congenital associations, facial nerve involvement, and treatment strategies. *Case Rep. Otolaryngol.* 2020;24:8435140. Doi: 10.1155/2020/8435140.
17. Jancikova J., Sicolova S., Machac J., et al. Salivary gland choristoma of the middle ear in child: a case report. *Ear. Nose Throat J.* 2021;100(Suppl. 3):356S–9. Doi: 10.1177/0145561321995024.



18. Abadir W.F., Pease W.S. Salivary gland choristoma of the middle ear. *J. Laryngol. Otol.* 1978;92(3):247–52. Doi: 10.1017/s0022215100085297.
19. Hinni M.L., Beatty C.W. Salivary gland choristoma of the middle ear: report of a cast and review of the literature. *Ear. Nose Throat J.* 1996;75(7):422–4.
20. Caplinger C.B., Hora J.F. Middle ear choristoma with absent oval window. *A report of one case. Arch. Otolaryngol.* 1967;85(4):365–6. Doi: 10.1001/archotol.1967.00760040367004.
21. Kartush J.M., Graham M.D. Salivary gland choristoma of the middle ear: a case report and review of the literature. *Laryngoscope.* 1984;94(2 Pt. 1):228–30. Doi: 10.1288/00005537-198402000-00017.
22. Enoz M., Suoglu Y. Salivary gland choristoma of the middle ear. *Laryngoscope.* 2006;116(6):1033–4. Doi: 10.1097/01.mlg.0000217250.08455.d3.
23. Buckmiller L.M., Brodie H.A., Doyle K.J., Nemzek W. Choristoma of the middle ear: a component of a new syndrome? *Otol. Neurotol.* 2001;22(3):363–8. Doi: 10.1097/00129492-200105000-00015.
24. Chen S., Li Y. Salivary gland choristoma of the middle ear. *Ear. Nose Throat J.* 2015;94(2):E9–12. Doi: 10.1177/014556131509400211.
25. Quaranta A., Mininni F., Resta L. Salivary gland choristoma of the middle ear: A case report. *J Laryngol Otol.* 1981;95(9):953–6. Doi: 10.1017/s0022215100091660.
26. Nassar M., Mansour O. Salivary Gland Choristoma of the Middle Ear. *A Case Report and Review of the Literature. Mediterran. J. Otol.* 2007;3(1):47–52.
27. Ture N., Kaya E., Pinarbasli M.O., et al. Salivary gland choristoma of the middle ear: case report. *Tr-ENT. Adv. Online Publicat.* Doi: <https://doi.org/10.26650/Tr-ENT.2022.1118028>.
28. Yamanobe Y., Oishi N., Nishiyama T., et al. Inner ear salivary gland choristoma extending to the middle ear with congenital profound hearing loss and facial palsy: a case report. *J. Otolaryngol. Head Neck Surg.* 2021;50(1):25. Doi: 10.1186/s40463-021-00511-3.
29. Ookouchi Y., Honda N., Gyo K. Salivary gland choristoma of the middle ear in a child: a case report. *Otolaryngol. Head Neck Surg.* 2003;128(1):160–2. Doi: 10.1067/mhn.2003.78.
30. Boleas-Aguirre M.S., Ernst S. et al. Panizo A., et al. Salivary gland choristoma (hamartoma) of the middle ear: a case report. *Rev. Laryngol. Otol. Rhinol. (Bord).* 2006;127(4):247–9.
31. Anderhuber W., Beham A., Walch C., Stammberger H. Choristoma of the Middle Ear. *Eur. Arch. Otorhinolaryngol.* 1996;253(3):182–4. Doi: 10.1007/BF00615119.
32. Su, Q. Y., Hao S.J., Wang L., Ye F.L. A rare case of salivary gland choristoma in the middle ear with pharyngeal hamartoma. *Chin. Med. J. (Engl).* 2019;132(8):1000–2. Doi: 10.1097/CM9.000000000000191.
33. Moore P.J., Benjamin B.N., Kan A.E. Salivary gland choristoma of the middle ear. *Int. J. Pediatr. Otorhinolaryngol.* 1984;8(1):91–5. Doi: 10.1016/s0165-5876(84)80029-4.
34. Gómez S.S., Solano J.M.M., Padrón, J.R.A., et al. Salivary gland choristoma of the middle ear and review of the literature. *Int. J. Otolaryngol. Head Neck Surg.* 2013;2(6):215–20. doi:10.4236/IJOHNS.2013.26045
35. Fois P., Giannuzzi A.L., Paties C.T., Falcioni M. Salivary gland choristoma of the middle ear. *Ear. Nose Throat J.* 2014;93(10–11):458–64.
36. Farneti P., Balbi. M., Foschini M.P. Neuroglial choristoma of the middle ear. *Acta Otorhinolaryngol. Ital.* 2007;27(2):94–7.
37. Cannon C.R. Salivary gland choristoma of the middle ear. *Am. J. Otol.* 1980;1(4):250–1.
38. Uğuz M.Z., Arslanoğlu S., Terzi S., Etit D. Glial heterotopia of the middle ear. *J. Laryngol. Otol.* 2007;121(4):e4. Doi: 10.1017/S002221510600329X.
39. Quatre R., Baguant A., Gil H., Schmerber S. Glial heterotopia of the middle ear. *Eur. Ann. Otorhinolaryngol. Head Neck Dis.* 2020;137(3):207–9. Doi: 10.1016/j.anorl.2020.01.017.
40. Lee D.K., Kim J.H., Cho Y.S., et al. Salivary gland choristoma of the middle ear in an infant: a case report. *Int. J. Pediatr. Otorhinolaryngol.* 2006;70(1):167–70. Doi: 10.1016/j.ijporl.2005.05.030.
41. Jančíková J., Šíkolová S., Machač J., et al. Salivary Gland Choristoma of the Middle Ear in a Child: A Case Report. *Ear. Nose Throat J.* 2021;100(Suppl. 3):356S–9. Doi: 10.1177/0145561321995024.
42. Власова Г.В., Павлов П.В., Винокурова А.Д. Информативность МРТ височных костей с использованием диффузионно-взвешенного изображения в диагностике холестеатомы среднего уха у детей. *Folia Otorhinolaryngol. Pathol. Respir.* 2019;25(4):21–8. Doi: 10.33848/folio r123103825-2019-25-4-21-28. [Vlasova G.V., Pavlov P.V., Vinokurova A.D. Informativeness of MRI of temporal bone using diffusion-weighted images in the detection of the middle ear cholesteatoma in children. *Folia Otorhinolaryngol. Pathol. Respir.* 2019;25(4):21–8 (In Russ.)].
43. Степанова Е.А., Самбулов В.И., Вишнякова М.В. Диффузионно-взвешенная магнитнорезонансная томография в диагностике холестеатом среднего уха. *Омский научный вестник.* 2014;2(134):63–6. [Stepanova E.A., Sambulov V.I., Vishnyakova M.V. Diffusion-weighted magnetic resonance imaging in middle ear cholesteatoma. *Omsk. Nauchn. Vestn.* 2014;2(134):63–6 (in Russ.)].
44. Cavaliere M., Di Lullo A.M., Cantone E., et al. Cholesteatoma vs granulation tissue: a differential diagnosis by DWI-MRI apparent diffusion coefficient. *Eur. Arch. Otorhinolaryngol.* 2018;275(9):2237–43. Doi: 10.1007/s00405-018-5082-5.
45. Власова Г.В., Курьянова Ю.А. Холестеатома среднего уха у детей: особенности течения и результаты оперативного лечения в возрастном аспекте. *Педиатрия.* 2017;8(Suppl. 1):M89–90. [Vlasova G.V., Kuryanova Yu.A. Middle ear cholesteatoma in children: features of the course and results of surgical treatment in the age aspect. *Pediatr.* 2017;8(Suppl. 1):M89–90 (In Russ.)].
46. Mohd Saiful A.I., Nik Adilah N.O., Farhana M.M., Sharifah Emilia T.S. A case of salivary gland choristoma presenting with ear discharge in a child having external auditory canal stenosis. *Med. J. Malaysia.* 2022;77(2):249–51.
47. Munster H. Salivary gland choristoma in the middle ear (in Danish). *Ugeskr. Laeger* 1994;156:4474–5.
48. Mischke R.E., Brackmann D.E., Gruskin P. Salivary gland choristoma of the middle ear. *Arch. Otolaryngol.* 1977;103(7):432–4. Doi: 10.1001/archotol.1977.00780240090016.
49. Supiyaphun P., Snidvongs K., Shuangshoti S. Salivary gland choristoma of the middle ear: case treated with KTP laser. *J. Laryngol. Otol.* 2000;114(7):528–32. Doi: 10.1258/0022215001906066.
50. Rinaldo A., Ferlito A., Devaney K.O. Salivary gland choristoma of the middle ear. A review. *J. Otorhinolaryngol. Relat. Spec.* 2004;66(3):141–7. Doi: 10.1159/000079334.

Поступила 21.11.2022

Получены положительные рецензии 05.07.24

Принята в печать 27.09.24

Received 21.11.2022

Positive reviews received 05.07.24

Accepted 27.09.2024

**Вклад авторов.** Г.В. Власова — обследование и хирургическое лечение пациента, обзор публикаций по теме статьи, анализ полученных данных, написание текста статьи. П.В. Павлов — концепция и дизайн публикации, проверка, коррекция текста статьи. А.Ш. Каримов — участие в обследовании и хирургическом лечении пациента, обзор публикаций по теме статьи, анализ полученных данных, помощь в написании текста статьи.

**The contribution of the authors.** G.V. Vlasova — examination and surgical treatment of the patient, review of publications on the topic of the article, analysis of the data obtained, writing the text of the article. P.V. Pavlov — the concept and design of



the publication, verification, correction of the text of the article. A.Sh. Karimov – participation in the examination and surgical treatment of the patient, review of publications on the topic of the article, analysis of the data obtained, assistance in writing the text of the article.

#### **Информация для связи:**

*Власова Галина Владимировна – к.м.н., доцент кафедры оториноларингологии ФГБОУ ВО Санкт-Петербургский государственный педиатрический медицинский университет Минздрава РФ. Адрес: 194100 Санкт-Петербург, ул. Литовская, д. 2; тел.: 8 (911) 751-76-63; e-mail: galinav71@mail.ru. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4070-2835>, SCOPUS ID: 57216893055.*

*Павлов Павел Владимирович – д.м.н., заведующий кафедрой оториноларингологии ФГБОУ ВО Санкт-Петербургский государственный педиатрический медицинский университет Минздрава РФ. Адрес: 194100 Санкт-Петербург, ул. Литовская, д. 2; тел.: 8 (921) 905-62-78; e-mail: pvpavlov@mail.ru. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-4626-201X>.*

*Каримов Анвархон Шухратжон угли – клинический ординатор кафедры оториноларингологии ФГБОУ ВО Санкт-Петербургский государственный педиатрический медицинский университет Минздрава РФ. Адрес: 194100*

*Санкт-Петербург, ул. Литовская, д. 2; тел.: 8 (960) 286-38-39; e-mail: anvarkhon.karimov@gmail.com. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0240-7387>.*

#### **Information about the authors:**

*Galina Vladimirovna Vlasova - Candidate of Medical Sciences, Associate Professor, Department of Otorhinolaryngology, St. Petersburg State Pediatric Medical University, Ministry of Health of the Russian Federation. Address: 2 Litovskaya St., 194100 St. Petersburg; tel: 8 (911) 751-76-63; e-mail: galinav71@mail.ru. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4070-2835>, SCOPUS ID: 57216893055.*

*Pavel Vladimirovich Pavlov - Doctor of Medical Sciences, Head of the Department of Otorhinolaryngology, St. Petersburg State Pediatric Medical University, Ministry of Health of the Russian Federation. Address: 2 Litovskaya St., 194100 St. Petersburg; tel: 8 (921) 905-62-78; e-mail: pvpavlov@mail.ru. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-4626-201X>.*

*Anvarhon Shukhratjon ugli Karimov - Clinical Resident of the Department of Otorhinolaryngology, St. Petersburg State Pediatric Medical University, Ministry of Health of the Russian Federation. Address: 2 Litovskaya St., 194100 St. Petersburg; tel: 8 (960) 286-38-39; e-mail: anvarkhon.karimov@gmail.com. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0240-7387>.*