

## CASUÏSTIEK

*Uit de Afdeling Pathologie  
van het Tandheelkundig  
Instituut der Rijksuniversiteit te Utrecht.  
Hoofd: Dr. F. VON BARTHELD.*

### EEN ZELDEN VOORKOMENDE TONGAFWIJKING

W. J. VISSER, tandarts <sup>1)</sup>

Op 17-10-'62 verscheen op de Kliniek voor Mondziekten en Kaakchirurgie (Hoofd: Prof. J. W. A. TJEKES) te Utrecht, een jongetje van twee jaar voor de behandeling van een afwijking aan de tongrug.

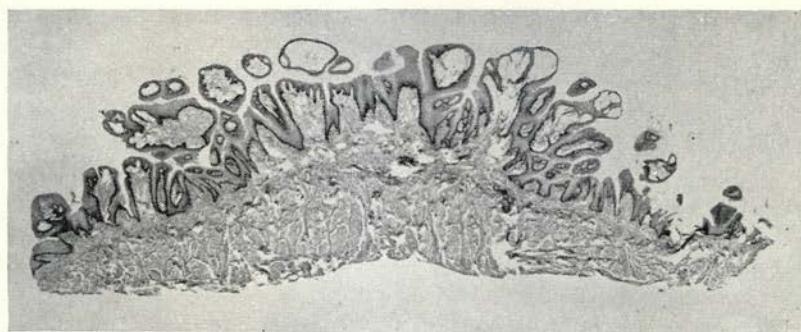
#### *Anamnese*

De patiënt (geb. 6-5-'60) werd 9 dagen na de geboorte wegens strekkrampen in het ziekenhuis opgenomen. Bij observatie vond men een dikke tong met regio-

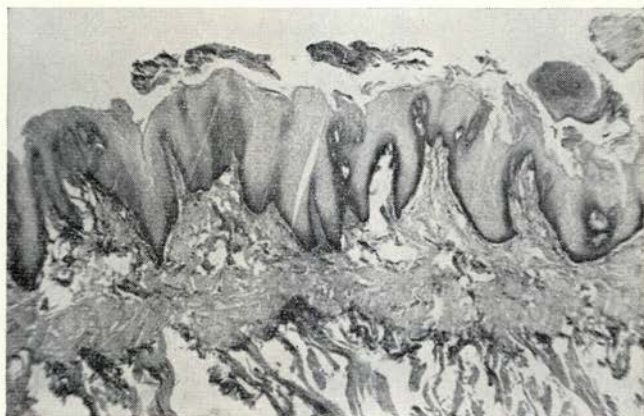


Afb. 1. Het klinische aspect van de afwijking op de tongrug.

<sup>1)</sup> Wetenschappelijk Ambt. 1 bij bovengenoemde afdeling.



Afb. 2. Overzicht van het histologische preparaat.



Afb. 3. Het histologische beeld van een normaal tongoppervlak t.p.v. de afwijking.

naire lymfklierzwellen en tevens een zwelling van de mondbodem. Na toediening van erythromycine nam de zwelling van de tong en de mondbodem snel af. Op grond van de diagnose haemangioom is men tot bestraling overgegaan. Na de bestraling is de toestand niet veranderd. In mei 1961 was de tong wederom gezwollen en ontstoken evenals de mondbodem. Na toediening van penicilline en streptomycine volgde een snelle verbetering. De zwelling is nog een aantal keren gerecidiveerd.

#### *Het klinische beeld*

Bij het onderzoek van de patiënt vond men op de tongrug een licht verheven, bloemkoolachtige woeking van grijswitte papels, waarvan sommige enigszins glazig en doorsichtig waren (zie afb. 1). De tong als geheel was niet merkbaar vergroot. Aan de onderrand van de tong en op de mondbodem kwamen kleinere analoge afwijkingen voor. De diagnose werd gesteld op lymphanژیoma linguae. De tumor is diathermisch tot in de spierlaag geëxideerd. Hierna zijn geen ont-

steking van de tong met zwelling van de mondbodem en regionale lymfklieren meer opgetreden. Het operatiemateriaal is histologisch onderzocht.

*Het histologische beeld*

Het materiaal van de met H.E. gekleurde coupe (zie afb. 2) is afkomstig uit het middelste deel van de tumor. De coupe ligt in het vlak loodrecht op de mediaanlijn van de tong. Van boven naar beneden kunnen drie lagen worden onderscheiden:

1. een sterk veranderde oppervlakkige laag, bestaande uit epitheel met daarbij behorend stratum papillare.
2. een laag van collageenrijk bindweefsel.
3. aansnijdingen van dwarsgestreepte (tong) musculatuur.

De verandering van het oppervlak zoals dat hier in het histologische preparaat te zien is, verklaart duidelijk het bloemkoolachtige aspect van de tumor. Sommige fungiforme papillen zijn blazig gezwollen; ze komen overeen met de glazige papeltjes zoals die in het klinische beeld beschreven zijn.

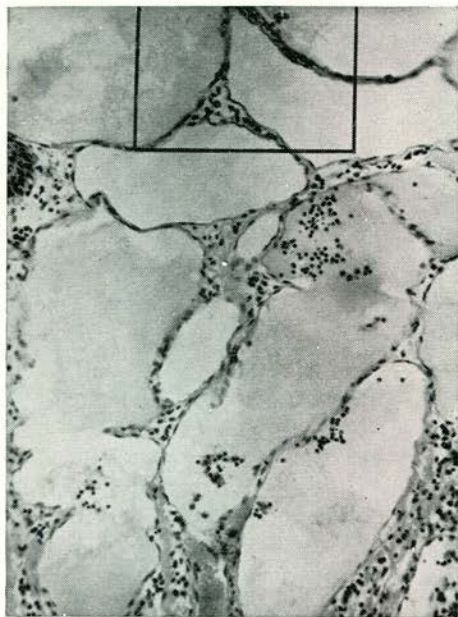
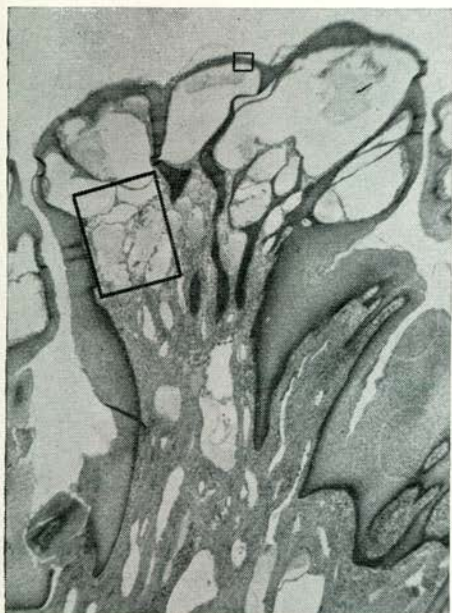
Vooral bij wat sterkere vergroting ziet men een aantal holtes die voor een groot deel in het stroma der fungiforme papillen liggen. Een deel hiervan bevat een enigszins amorfe massa, die bij sterkere vergroting korrelige en draderige

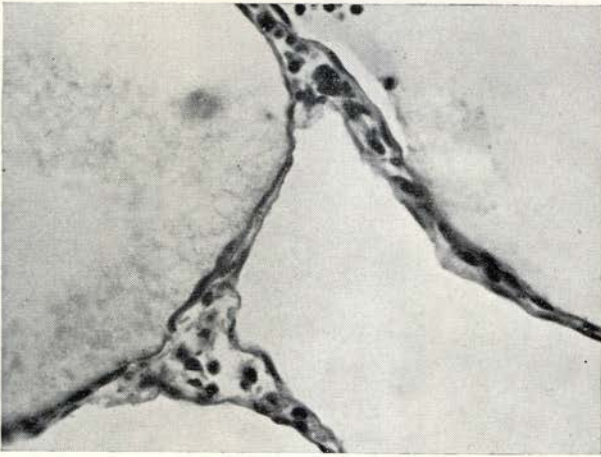
Afb. 4. Een sterk veranderde fungiforme papil met holtes in het stroma.

Afb. 5. Détail uit afb. 4. Let op de aanwezigheid van lymfocytten in de holtes.

Afb. 4

Afb. 5

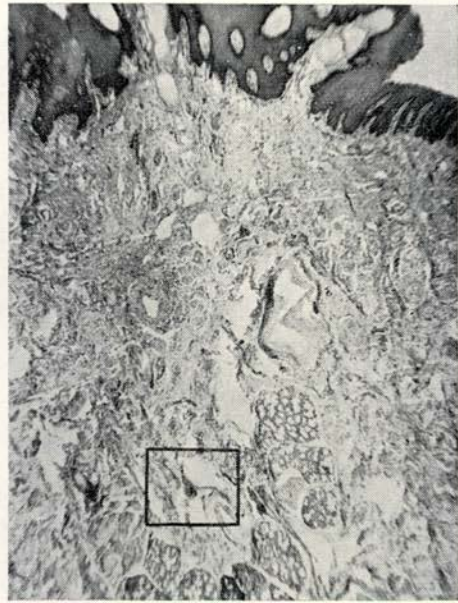




Afb. 6. Détail uit afb. 5 (4). Dunne bindweefselsschotten tussen de holtes.



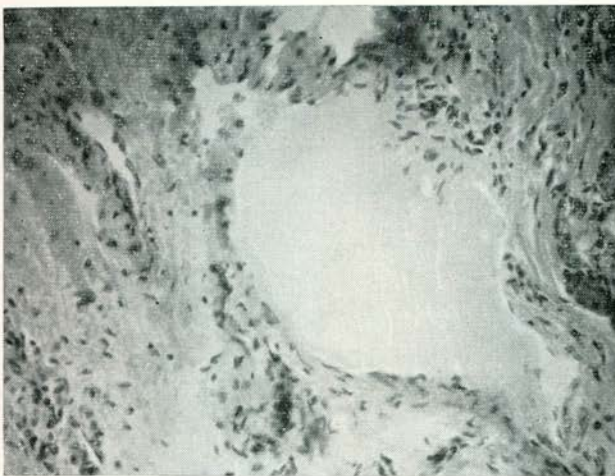
Afb. 7



Afb. 8

Afb. 7. Détail uit afb. 4. Holte die dicht tegen het epitheel aanligt. Let op de endothel-bekleding v.h. lumen die hier nog duidelijker te zien is dan in fig. 6.

Afb. 8. Overzicht van een dieper deel van de tong waarin men eveneens een aantal met lymfe gevulde holtes of spleten vindt.



Afb. 9. Détail uit afb. 8. Met lymfe gevulde holtes zonder duidelijke endotheelbekleding.

structuren vertoont. (zie afb. 4, 5 en 6). De meeste van deze holtes zijn met endotheel bekleed en bevatten tevens een aantal lymfocyten, terwijl geen of slechts enkele erythrocyten gevonden worden. Hieruit is af te leiden, dat we met lymfvaten te maken hebben, die in dit bijzondere geval sterk verwijd zijn. Men ziet dat vooral in het stroma der fungiforme papillen deze vaten nog maar door een dun bindweefseltussenschot van elkaar of van het bedekkende epitheel gescheiden zijn (zie afb. 6 en 7).

In dieper gelegen delen van de tong vindt men eveneens met lymfe gevulde holtes (afb. 8 en 9). Daar hierbij de endotheelbekleding nogal eens ontbreekt en het lumen meer spleet- dan bolvormig is, denken we aan de mogelijkheid dat het met lymfe gevulde weefselspletten zijn.

Subepitheliaal vindt men een gering chronisch ontstekingsinfiltraat, hetgeen te verklaren is uit het veranderde tongoppervlak waardoor de irritatie wat verhoogt is.

Resumerend laat het histologisch beeld het volgende zien: een groot aantal sterk verwijde lymfvaten, vooral in het stroma van de fungiforme papillen en een geringer aantal lymfvaten en met lymfe gevulde weefselspletten in wat diepere delen van de tong.

#### *Uit de literatuur*

In 1878 is door DOLLINGER<sup>1</sup> voor het eerst een tongafwijking beschreven, waarbij hij spreekt van een „cysteuze degeneratie van de fungiforme papillen”; een afwijking, die vrijwel identiek is met die welke hierboven besproken is. ROBIN en LEREDDE<sup>2</sup> (1896) spreken in een bepaald geval van „varices lymphatiques”. Hierbij wordt verband gezocht tussen verwijde lymfvaten en ontsteking,

in het bijzonder die ontsteking welke door streptococcon veroorzaakt wordt en waarvan bekend is, dat ze zich graag lymfogeen verspreiden. Meestal is dan de infectie een commensale infectie. Door opvlamming van de ontsteking kan het dan tot obliteratie van de grote toestromende lymfvaten komen, waardoor stuwung optreedt. Bij een patiënt met erysipelas heeft men dergelijke varices in de mucosa van lip en wang gevonden.

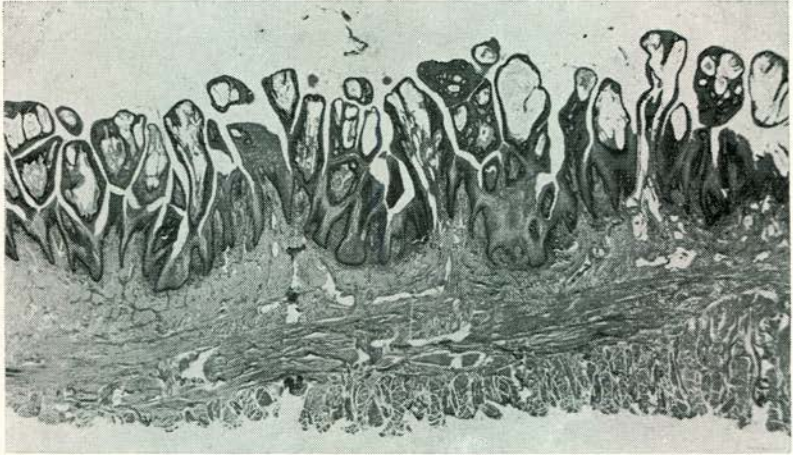
SCHMERZ<sup>3</sup> (1920) spreekt van een lingua papillo-cystica en vermeldt erbij dat ook de filiforme papillen cysteus kunnen worden. Hij twijfelt er niet aan of men heeft te maken met een primaire aangeboren anomalie van de lymfvaten; een mening die hij o.a. met KAUFMANN deelt. Hij neemt echter wel aan, dat de ontsteking voor een groot deel verantwoordelijk is voor het klinisch zichtbaar worden van de afwijking, waarbij vasomotorische factoren een rol zouden spelen.

BERGGREEN<sup>5</sup> (1938) spreekt van een lymphangioma circumscriptum. Hij beschrijft een geval waar het zichtbaar worden van de afwijking in verband wordt gebracht met de algemene ontwikkeling van het orgaan (puberteit) en wijst daarbij op het analoge gedrag van naevogene tongveranderingen. Uit de literatuur zijn ons nog een 18-tal overeenkomstige tongafwijkingen bekend geworden. Hierbij bleek dat in 12 gevallen de afwijking zich al voor het 5e levensjaar manifesteerde. In één geval (CHRISTENSEN<sup>6</sup>, 1953) bestond de afwijking al bij de geboorte. In een drietal gevallen was er duidelijk sprake van ontsteking. SCHMERZ<sup>3</sup> beschrijft een geval waarbij de afwijking aanvankelijk éenzijdig op de tong voorkwam, terwijl deze zich na de eerste menstruatie op 14-jarige leeftijd, ook dubbelzijdig vertoonde. Bij dezelfde patiënt werd geconstateerd dat tijdens een griepaanval de tong ontstoken raakte.

In al de gevallen was de afwijking gelocaliseerd vóór de sulcus terminalis. Tweemaal vormde de mediaanlijn een duidelijke begrenzing van de tumor waarbij t.p.v. de mediaanlijn een groeve te zien was.

### *Discussie*

Naar aanleiding van gegevens uit de literatuur, aangevuld met die van ons „case-report”, menen wij, dat hier eveneens sprake is van een afwijking waarbij in eerste instantie de lymfvaten betrokken zijn. Dat de afwijking over het algemeen pas enige tijd na de geboorte manifest wordt, past in het kader van de veronderstelling dat een zekere prikkeling (irritatie, ontsteking) nodig is om de lymfvaten te doen zwellen. Dat hormonale storingen (menstruatie, puberteit) en ziekten (griep) één en ander kunnen beïnvloeden, laat zich ongedwongen uit de daarbij voorkomende daling van de algemene weerstand verklaren. Het is niet zo dat we van een echte tumor kunnen spreken, daarvoor ontbreken teveel de typische tumorkenmerken. Daarom lijkt ons voor deze afwijking de benaming lymphangioma of lymphangioma circumscriptum niet zo geschikt en spreken we liever van cysteuze degeneratie van de fungiforme papillen zoals DOLLINGER, of voor dit speciale geval, van lymfangiectasieën, die vnl. in het stroma van de fungiforme papillen optreden.



Afb. 10.

#### *Naschrift*

Tijdens het ter perse gaan van bovenstaande mededeling werd eveneens op de kliniek voor mondziekten en kaakchirurgie, een tweede geval van cysteuze degeneratie van tongpapillen gesignaleerd.

Hoewel deze afwijking in klinisch en histologisch opzicht met de vorige overeenkomt willen we ze toch, terwille van de volledigheid, niet onvermeld laten. Enkele gegevens volgen hier.

Patiënt (♀) oud 10 jaar heeft op de gehele tongrug voor de sulcus terminalis kleine blaasjes ter plaatse van de filiforme en fungiforme papillen. Ook aan de onderzijde van de tong bevinden zich enkele blaasjes. Af en toe is de tong gezwollen geweest ten gevolge van secundaire infectie. Bij operatie is een deel van het tongoppervlak chirurgisch verwijderd terwijl van een ander deel van de tong de blaasjes gecoaguleerd zijn.

Het histologische beeld (zie afb. 10) vertoont veel overeenkomst met dat van afb. 2. Het enige verschil is dat in het tweede geval de filiforme papillen meedoen terwijl de afwijking zich nog meer tot de oppervlakkige laag van de tong beperkt.

#### *Literatuur:*

1. DOLLINGER, J., Arch. Klin. Chir. Bd. 22. blz. 701 (1878).
2. ROBIN en LEREDDE, Arch. de méd. exper. Bd. 8. blz. 459 (1896).
3. SCHMERZ, H., Beitr. z. klin. Chir., CXIX, blz. 177 (1920).
4. KAUFMANN, Specielle Pathologische Anatomie. I Band 2. Hälfte blz. 861.
5. BERGGREEN, P., Zhl. Haut-Geschl. Krkh. 58, blz. 331 (1938).
6. CHRISTENSEN, R. W., Oral. Surg. S. Louis 6, blz. 593 (1953).