

\*MONIKA JABŁOŃSKA-JESIONOWSKA, MAŁGORZATA DĘBSKA-RUTKOWSKA, PIOTR KWAST,  
LIDIA ZAWADZKA-GŁOS

## Parotitis in children hospitalized in the Department of Pediatric Otolaryngology of the Medical University of Warsaw in the years 2010-2017

Zapalenia ślinianek przyusznych u dzieci w materiale  
Kliniki Otolaryngologii Dziecięcej WUM w latach 2010-2017

Department of Pediatric Otolaryngology, Medical University of Warsaw, Poland  
Head of Department: Associate Professor Lidia Zawadzka-Głós, MD, PhD

### KEYWORDS

parotid gland, chronic recurrent parotitis, autoimmune diseases

### SUMMARY

**Introduction.** Parotitis can be divided into chronic and acute parotitis. Acute parotitis is caused by a viral or bacterial infection. Chronic parotitis includes chronic recurrent parotitis, parotitis due to sialolithiasis, parotitis related to angiomas, as well as parotitis as a symptom of autoimmune diseases.

**Aim.** The aim of the study was to analyze the inflammatory changes in parotid salivary glands in children.

**Material and Methods.** Between 2010 and 2017, 30 children were hospitalized in the Department of Pediatric Otolaryngology of the Medical University of Warsaw due to the swelling and pain of a parotid gland. Age, gender, etiology of the disease, location, laboratory findings, and comorbidities were assessed.

**Results.** The cause of hospitalization was swelling and pain of a parotid salivary gland. The age of children ranged from 1 month to 15 years of age (mean age was 4.2 years). In 11 children, bilateral parotitis was diagnosed, in 19 children, the lesions were unilateral. In 7 children, acute parotitis was diagnosed. In these patients, elevated inflammatory markers, enlarged lymph nodes, or an abscess of the gland in the ultrasonographic examination was observed. In 20 children, chronic recurrent parotitis was diagnosed. In these patients, no elevated inflammatory markers were observed during exacerbations. In ultrasound, hypoechogenic foci were observed. Eleven children were diagnosed with autoimmune diseases. Three children were diagnosed with lymphangioma or hemangioma. None of the patients suffered from sialolithiasis nor pneumoparotitis.

**Conclusions.** Parotitis that have its onset between 3 and 4 years of age may be recurrent parotitis. The diagnosis of chronic recurrent parotitis is based on clinical symptoms, ultrasound signs, and lack of elevated inflammatory markers. Bilateral chronic recurrent parotitis is related to an increased risk of autoimmunological diseases; chronic parotitis precedes their onset. Children with bilateral chronic recurrent parotitis require further testing for autoimmune diseases.

## SŁOWA KLUCZOWE

ślinianki przyuszne, nawracające zapalenia ślinianek, choroby autoimmunologiczne

## STRESZCZENIE

**Wstęp.** Wyróżniamy ostre i przewlekłe zapalenia ślinianek przyusznych. Ostre spowodowane są infekcją wirusową lub bakteryjną. Przewlekłe obejmują zapalenia nawrotowe, zapalenia w przebiegu kamicy, zapalenia związane z występowaniem naczynek oraz jako objaw chorób autoimmunologicznych.

**Cel pracy.** Celem pracy była analiza zmian zapalnych występujących u dzieci w obrębie ślinianek przyusznych.

**Materiał i metody.** W latach 2010-2017 w Klinice Otolaryngologii Dziecięcej Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego z powodu obrzęku i bólu ślinianek przyusznych hospitalizowano 30 dzieci. Oceniano wiek, płeć, etiologię zapalenia, lokalizację zmian, wyniki badań dodatkowych oraz współwystępowanie innych chorób.

**Wyniki.** Przyczyną hospitalizacji był obrzęk i ból ślinianki przyusznej. Wiek dzieci wynosił od 1. miesiąca do 15. r.ż. (średni wiek wynosił 4,2 lata). U 11 dzieci stwierdzono obustronne występowanie zmian, u 19 – jednostronne. U 7 dzieci rozpoznano ostre zapalenie ślinianek przyusznych. Stwierdzono u nich podwyższone wykładniki stanu zapalnego oraz powiększone węzły chłonne lub ropień w obrębie ślinianki w badaniu USG. U 20 dzieci rozpoznano nawrotowe zapalenie ślinianek. U tych dzieci w okresie zaostrzeń nie stwierdzano podwyższonych wykładników stanu zapalnego. W badaniu ultrasonograficznym stwierdzano ogniska hipoechogeniczne. U 11 dzieci rozpoznano choroby o podłożu autoimmunologicznym. U 3 dzieci rozpoznano naczyniaki limfatyczne lub krwionośne. W żadnym przypadku nie stwierdzono kamicy lub pneumoparotitis.

**Wnioski.** Zapalenie ślinianek przyusznych rozpoczynające się pomiędzy 3. a 4. rokiem życia może być zapaleniem nawrotowym. Rozpoznanie nawrotowego zapalenia ślinianek można postawić na podstawie objawów klinicznych, zmian w badaniu ultrasonograficznym oraz braku podwyższonych wykładników stanu zapalnego. Obustronne, nawracające zapalenie ślinianek przyusznych wiąże się ze zwiększonym ryzykiem występowania chorób o charakterze autoimmunologicznym; zapalenia ślinianek wyprzedzają ich początek. Dzieci z nawrotowym zapaleniem ślinianek o lokalizacji obustronnej wymagają badań w kierunku chorób autoimmunologicznych.

## INTRODUCTION

Parotitis in children is a complex clinical problem. It is characterized by a high number of possible ethiological factors and unpredictable clinical course (1-4). Parotitis can be divided into chronic and acute parotitis.

Acute parotitis in children is usually caused by a viral or bacterial infection. The most common viral ethiological factor is mumps virus (2). Other causes include mononucleosis caused by Epstein-Barr virus (EBV), as well as adenoviruses, Coxsackie viruses, influenza virus, and HIV. Bacterial acute parotitis is primarily caused by *Staphylococcus aureus* and *Staphylococcus viridans* (2).

Chronic parotitis is less common than the acute one. Chronic parotitis can be divided into the so-called chronic recurrent parotitis, parotitis due to sialolithiasis, and parotitis related to angiomas in the gland. Even less often, parotitis is a manifestation of a systemic or autoimmune disease, such as: sarcoidosis, Sjögren syndrome, cystic fibrosis, diabetes mellitus, and thyroid disorders (1, 2). Moreover, pneumoparotitis can sometimes occur, which can be idiopathic or related to an increased pressure in the oral cavity, most often occurring during balloon blowing, gum chewing, and as a result of professional exposure, for example in trumpeters and glassworkers. In children, pneumoparotitis occurs very rarely (1, 5-7).

## WSTĘP

Zapalenia ślinianek przyusznych u dzieci stanowią złożony problem kliniczny. Cechują się one różną etiologią i nieprzewidywalnym przebiegiem klinicznym (1-4). Wyróżniamy ostre i przewlekłe zapalenia ślinianek przyusznych.

Ostre zapalenia najczęściej spowodowane są infekcją wirusową lub bakteryjną. Najczęstszą infekcją wirusową jest nagminne zapalenie przyusznic, tzw. świnka (2). Do innych przyczyn należą mononukleozę zapalną spowodowaną zakażeniem wirusem Epstein-Barr (EBV) oraz zakażeniem adenowirusami, wirusami z grupy Coxsackie, wirusami grypy lub wirusem HIV. Bakteryjne zakażenia są wywoływane przede wszystkim przez *Staphylococcus aureus* i *Staphylococcus viridans* (2).

Przewlekłe zapalenie ślinianek przyusznych występuje rzadziej niż zapalenie ostre. Zapalenia przewlekłe można podzielić na tzw. nawracające zapalenia ślinianek przyusznych, zapalenia ślinianek w przebiegu kamicy czy też zapalenia związane z występowaniem naczynek w obrębie gruczołu. Jeszcze rzadziej zapalenie ślinianek przyusznych występuje jako jeden z objawów chorób układowych i autoimmunologicznych, takich jak: sarkoidoza, zespół Sjögrena, mukowiscydoza, cukrzyca oraz choroby tarczycy (1, 2). Spotyka się także *pneumoparotitis*, czyli tzw. odmę ślinianki, która może mieć charakter idiopatyczny lub być związana z wytwarzaniem nadmiernego ciśnienia w jamie ustnej,

Chronic recurrent parotitis in children is a rare disease with a multifactorial and unclear etiology. It is believed that the causes include congenital anomalies of parotid glands and their ducts, as well as recurrent infections, allergies, immunodeficiencies, and autoimmune reactions (2, 8). The role of immunoglobulin IgA is underlined, as its deficiency may lead to chronic parotitis. IgA is an immunoglobulin produced by mucous membranes, including oral and respiratory mucosa. It is thought that chronic recurrent parotitis coexists with respiratory and gastrointestinal diseases, such as asthma and celiac disease (3, 8). Chronic recurrent parotitis is diagnosed in children aged from a few months to 15-17 years of age. The most common symptom is painful swelling of one or two parotid glands without purulent discharge from duct orifice, as well as increased body temperature. The symptoms last for a few days and they resolve spontaneously, reoccurring with various frequency, from a single recurrence to several episodes a year. The diagnosis of chronic recurrent parotitis is often delayed by several months or even years, as the first episode is usually diagnosed as acute parotitis. In parotid ultrasound, characteristic lesions in the form of small hypoechoic foci are observed, which correspond to parotid duct dilation (3, 4, 9-12). In some cases, chronic recurrent parotitis resolves spontaneously at the onset of puberty – it is then referred to as juvenile recurrent parotitis (2). Treatment method is dependent on the number of recurrences and the severity of clinical symptoms. Between the symptomatic periods, chewing gum, lemon sucking, and other salivary stimulants are advised. It is also recommended to massage and heat the gland, which enables the saliva to liquefy (2, 12). During exacerbations with significant swelling and fever, it may be advisable to introduce antibiotic treatment to prevent adhesions (2, 9, 11-14). In case of a large number of exacerbations and severe symptoms, sialoendoscopy with corticosteroid irrigation of the gland or with sialography, which, in this case, is probably not only diagnostic, but also therapeutic, may be recommended (2, 9, 11-14). The aim of the procedure is to widen parotid ducts or to induce the inflammation of the gland, which result in the exclusion of a part of the gland from saliva production (2, 9, 11-14). Treatment methods also include ligation of the parotid duct and partial superficial parotidectomy. Surgical treatment methods are controversial due to the risks of general anesthesia, the risk of facial nerve paralysis, as well as uncertain clinical outcome with possible recurrence during puberty (2, 9, 12-14).

## AIM

The aim of the study was to analyze the inflammatory changes in parotid salivary glands in children, with particular regard to etiology, laboratory findings, and clinical outcome of chronic recurrent parotitis.

najczęściej podczas dmuchania balonów, żucia gumy balonowej, czy w wyniku ekspozycji zawodowej, np. u trębaczy lub przy produkcji szkła. U dzieci spotykana jest bardzo rzadko (1, 5-7).

Nawracające zapalenie ślinianek przyusznych u dzieci jest rzadkim schorzeniem o niejasnej, wieloczynnikowej etiologii. Uważa się, że przyczyną mogą być wrodzone anomalie w budowie ślinianek i ich przewodów wyprowadzających, a także nawracające infekcje, alergia, niedobory odporności i reakcje autoimmunologiczne (2, 8). Podkreśla się rolę immunoglobuliny IgA, której niedobór może stać się przyczyną nawracającego zapalenia. IgA należy do przeciwciał produkowanych przez błony śluzowe, m.in. przewodu pokarmowego oraz dróg oddechowych. Uważa się, że nawracające zapalenie ślinianek może współwystępować z chorobami układu oddechowego lub pokarmowego, np. z astmą czy celiakią (3, 8). Nawracające zapalenie ślinianek przyusznych jest rozpoznawane u dzieci w wieku od kilku miesięcy do 15-17 lat. Najczęstszym objawem jest bolesny obrzęk jednej lub obu ślinianek bez wycieku treści ropnej oraz podwyższona temperatura ciała. Objawy trwają kilka dni i ustępują samoistnie, pojawiając się ponownie z różną częstotliwością, od pojedynczego epizodu nawrotu do zapaleń kilka razy w roku. Rozpoznanie nawracającego zapalenia ślinianek często jest opóźnione o kilka miesięcy lub nawet lat, ponieważ pierwsze zapalenie zwykle jest diagnozowane jako ostre zapalenie ślinianek. W badaniu ultrasonograficznym ślinianek stwierdzone są charakterystyczne zmiany pod postacią hipoechogenicznych drobnych ognisk, które odpowiadają poszerzonym przewodom ślinowym (3, 4, 9-12). W niektórych przypadkach nawracające zapalenie ślinianek przyusznych samoistnie zanika w wieku pokwitania – określa się je wtedy mianem młodzieńczego nawracającego zapalenia ślinianek przyusznych (2). Leczenie uzależnione jest od liczby nawrotów i stopnia nasilenia objawów klinicznych. W okresach między nawrotami zaleca się żucie gumy, ssanie cytryny i innych środków pobudzających wydzielanie śliny, a także masowanie i rozgrzewanie gruczołu mające na celu upłynnienie śliny (2, 12). W okresie zaostrzeń z dużym obrzękiem i gorączką można włączyć antybiotykoterapię w celu prewencji zrostów (2, 9, 11-14). W przypadku znacznej liczby nawrotów i nasilonych objawów rozważa się sialoendoskopię z podaniem do przewodu ślinowego sterydu lub wykonaniem sialografii, która poza zastosowaniami diagnostycznymi prawdopodobnie pełni także funkcję leczniczą (2, 9, 11-14). Zabieg ma na celu poszerzenie przewodów wyprowadzających lub wywołanie stanu zapalnego gruczołu prowadzące do powstania zrostów i w efekcie wyłączenia części mięszu ślinianki z produkcji śliny (2, 9, 11-14). Do metod leczenia zalicza się także podwiązanie przewodu wyprowadzającego ślinianki przyusznej lub parotidektomię płata powierzchniowego. Metody zabiegowe są kontrowersyjne ze względu na ryzyko związane ze znieczuleniem, możliwość porażenia nerwu twarzowego, jak również niepewny przebieg kliniczny z możliwym nawrotem zapaleń w okresie pokwitania (2, 9, 12-14).

## MATERIAL AND METHODS

Between 2010 and 2017, 30 children were hospitalized in the Department of Pediatric Otolaryngology of the Medical University of Warsaw due to parotitis. For 12 children, the Department of Pediatric Otolaryngology was the first place where they reported to with salivary gland problems. Another 18 children had previously been treated and diagnosed by other departments or their pediatricians. In all the children, sialadenitis was localized in parotid glands. Age, gender, etiology of the disease, location, laboratory findings, and comorbidities were assessed. Laboratory studies included blood count, inflammatory markers (ESR and CRP), serum amylase. Ultrasound examination of the parotid glands was performed. Children with recurrent parotitis had additional tests performed, depending on the number of episodes. The tests included: rheumatoid factor in serum, serum IgA immunoglobulin, and antinuclear antibodies (ANA). In these children, additional endocrine, gastroenterological and rheumatology consultations were planned.

## RESULTS

The cause of hospitalization for all 30 children (17 boys and 13 girls) was swelling and pain of a parotid salivary gland. In 12 children (40%), the symptoms were accompanied by elevated body temperature. In 3 children (10%), purulent discharge from duct orifice was observed. Eleven children (36%) were diagnosed with bilateral parotitis, and another 19 (64%) – unilateral parotitis.

In 7 children (5 boys and 2 girls), acute parotitis was diagnosed. In 6 of these patients, inflammation was caused by *Staphylococcus aureus*, and in 1 patient – by a viral infection in the course of mononucleosis. In this group of patients, 3 children were less than 1 year of age, 1 was 3 years old, and 3 – between 3 to 15 years. In 7 patients, elevated inflammatory markers (leukocytosis, elevated ESR and CRP) were detected. In 5 patients (71%), raised serum amylase was discovered. Six children (86%) had fever. In 3 children (43%), purulent discharge from duct orifice was observed. In ultrasound examination, fine, enlarged lymph nodes were observed, and in 2 children, they were accompanied with an abscess of the gland. First-line treatment consisted of antibiotic therapy. Children with abscesses required additional surgical drainage. Amoxicillin with beta-lactamase inhibitors or cephalosporin with clindamycin were used. In all cases, recovery was achieved and no recurrence was observed.

In 3 children (1 boy aged 6 years and 2 girls aged 3 and 5 months), angioma was suspected after the ultrasound examination. Ultimately, after MRI with contrast, the boy was diagnosed with lymphangioma, and the girls were diagnosed with infantile hemangiomas. The girls were qualified for propranolol treatment and full recovery was achieved. The boy is currently undergoing treatment qualification.

## CEL PRACY

Celem pracy była analiza zmian zapalnych występujących w obrębie gruczołów ślinowych u dzieci ze szczególnym uwzględnieniem etiologii, odchyień w badaniach dodatkowych oraz przebiegu klinicznego nawracających zapaleń ślinianek przyusznych.

## MATERIAŁ I METODY

W latach 2010-2017 w Klinice Otolaryngologii Dziecięcej Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego z powodu zapalenia ślinianek hospitalizowano 30 dzieci. Dla 12 dzieci Klinika Otolaryngologii Dziecięcej była pierwszym miejscem, do którego zgłosiły się one z chorobą ślinianek. Pozostałe 18 dzieci było wcześniej pod opieką innych ośrodków lub lekarzy pediatrów. U wszystkich dzieci zapalenie dotyczyło ślinianek przyusznych. Oceniano wiek i płeć dzieci, etiologię zapalenia, lokalizację zmian zapalnych, analizowano i porównywano wyniki badań dodatkowych oraz współwystępowanie innych chorób. Badania dodatkowe obejmowały morfologię, parametry stanu zapalnego, m.in. OB i CRP, poziom amylazy w surowicy oraz badanie ultrasonograficzne gruczołów ślinowych. Dzieciom z nawracającym zapaleniem ślinianek przyusznych rozszerzono diagnostykę oznaczając, w zależności od ilości epizodów zaostrzenia, poziom: czynnika reumatoidalnego (RF), immunoglobulin IgA, przeciwciał przeciwjądrowych ANA. U tych dzieci zaplanowano również konsultacje endokrynologiczne, gastroenterologiczne i reumatologiczne.

## WYNIKI

Przyczyną przyjęcia do szpitala wszystkich 30 dzieci (17 chłopców i 13 dziewczynek w wieku od 1 miesiąca do 15 lat) był obrzęk ślinianki przyusznej oraz ból okolicy ślinianki. Objawom u 12 dzieci (40%) towarzyszyła podwyższona temperatura ciała. U 3 dzieci (10%) w badaniu klinicznym stwierdziliśmy wyciek treści ropnej z ujścia zewnętrznego ślinianki przyusznej w przedślonki jamy ustnej. U 11 dzieci (36%) stwierdzono obustronne występowanie zmian, a pozostałych 19 (64%) – jednostronne.

U 7 dzieci (5 chłopców i 2 dziewczynek) rozpoznano ostre zapalenie ślinianek przyusznych, w tym u jednego z pacjentów obustronne. W 6 przypadkach było to zakażenie bakteryjne o etiologii *Staphylococcus aureus*, w jednym – zakażenie wirusowe w przebiegu mononukleozy zakaźnej. W tej grupie 3 pacjentów było w wieku do 1. roku życia, 1 pacjent miał trzy lata, a 3 pacjentów była w wieku od 3 do 15 lat. U 7 dzieci w badaniach dodatkowych stwierdzono podwyższone parametry stanu zapalnego: leukocytozę, podwyższony poziom CRP oraz OB. U 5 pacjentów (71%) stwierdzono podwyższony poziom amylazy w surowicy krwi. Sześcioro dzieci (86%) gorączkowało. U 3 dzieci (43%) wystąpił wyciek treści ropnej z ujścia ślinianki. W badaniach ultrasonograficznych (USG) stwierdzono drobne, powiększone węzły chłonne w obrębie zajętej ślinianki, a u 2 dzieci – tworzący się ropień. Leczeniem z wyboru była antybiotykoterapia, ropnie wymagały dodatkowo drenażu chirurgicznego. Stosowano amoksylicynę

In 20 children (66%; 10 boys and 10 girls aged between 2 and 15 years; mean age 4.4 years), parotitis occurred more than once. In these patients, chronic recurrent parotitis was diagnosed. The age distribution of acute parotitis and the first episode of chronic recurrent parotitis are presented at figure 1.

The frequency of relapses varied: from one recurrence during lifetime to 5-6 times a year. In 9 children (45%), recurrences were always unilateral and usually affected right parotid gland (in 7 children), in another 11 children (55%) the changes were bilateral. In all 20 patients, CRP, ESR and white blood cells count were measured during the acute inflammation. Periodically, a slightly elevated CRP with concurrent normal ESR and normal white blood cells count was observed. Serum amylase in children with chronic recurrent parotitis was within the normal range. In these patients, rheumatoid factor was also measured, and the results were also within the normal limits. IgA level and ANA titer were also assessed. In 2 children with bilateral chronic recurrent parotitis, low IgA level was detected, in 1 patient with unilateral parotitis, high IgA level was identified. In another 3 children, positive ANA results were obtained. In parotid ultrasound, characteristic lesions in the form of small hypoechogenic foci were observed in all 20 children, which corresponds to parotid duct dilation (fig. 2).

The frequency of recurrences varied: 6 children had 2 episodes, 4 children – 3 episodes, 1 child – 4 episodes, 2 children – 5 episodes, 7 children – several episodes, including 3 children who had several episodes every year. Children with chronic recurrent parotitis periodically report to the Clinic during relapses and stay under constant ENT outpatient care. During the observational period, autoimmune diseases were diagnosed in 12 children (60%) with chronic recurrent parotitis (in 10 patients – 91% – children with bilateral parotitis and in 2 patients – 22% – with

z inhibitorem beta-laktamazy lub cefalosporynę z klindamycyną. We wszystkich przypadkach uzyskano wyleczenie i nie stwierdzono nawrotów choroby.

U 3 dzieci (1 chłopiec w wieku 6 lat i 2 dziewczynki w wieku 3 i 5 miesięcy) na podstawie USG ślinianek wysunięto podejrzenie naczyniaka. Ostatecznie w badaniu MRI z kontrastem rozpoznano u chłopca naczyniaka limfatycznego, a u dziewczynek naczyniaki krwionośne wczesnodziecięce. Dziewczynki zakwalifikowano do leczenia propranololem, uzyskując regresję zmian. Chłopiec jest aktualnie w trakcie kwalifikacji do leczenia.

U 20 dzieci (66%; 10 chłopców i 10 dziewczynek w wieku od 2 do 15 lat; średni wiek 4,4 lata) zapalenie ślinianek przyusznych wystąpiło więcej niż 1 raz. Rozpoznano u nich nawracające zapalenie ślinianek. Rozkład wieku, w którym wystąpiło ostre zapalenie ślinianek oraz pierwszy epizod nawracającego zapalenia obrazuje rycina 1.

Częstość występowania nawrotów była różna: od jednego epizodu w ciągu całego życia do 5-6 razy w roku. U 9 dzieci (45%) nawracające zmiany pojawiały się zawsze jednostronnie i najczęściej obejmowały śliniankę przyuszną prawą (u 7 dzieci), u kolejnych 11 (55%) zmiany występowały obustronnie. U wszystkich 20 dzieci w okresie zapalenia w oznaczono CRP, OB oraz liczbę leukocytów. Okresowo stwierdzano nieznacznie podwyższony poziom CRP przy prawidłowym OB i prawidłowej liczbie leukocytów. Poziom amylazy w surowicy krwi u dzieci z nawracającym zapaleniem ślinianek był w granicach normy. U tych dzieci oznaczano także poziom czynnika reumatoidalnego RF, również uzyskując wyniki w granicach normy. Oznaczono także poziom IgA oraz miano przeciwciał przeciwjądrowych ANA. U 2 dzieci z nawracającym zapaleniem ślinianki przyusznej o lokalizacji obustronnej stwierdzono obniżony poziom IgA, u 1 pacjenta z jednostronnym zapaleniem stwierdzono podwyższony poziom immunoglobuliny IgA. U 3 innych dzieci z obustronnym

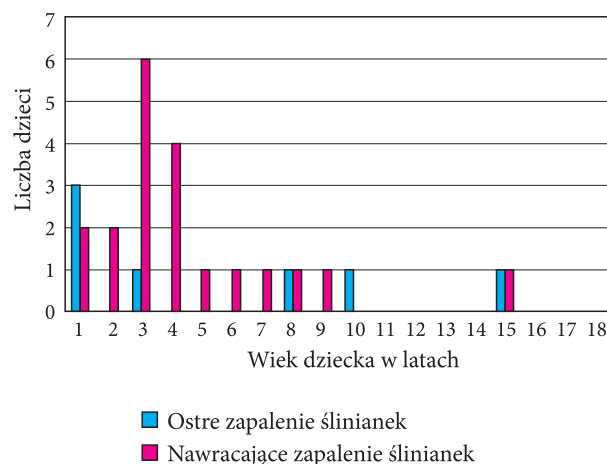
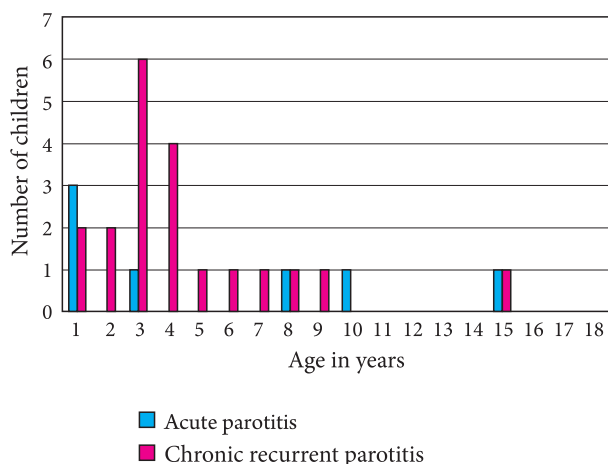


Fig. 1. Age distribution of acute parotitis and the first episode of chronic recurrent parotitis

Ryc. 1. Wiek dzieci, w którym wystąpiło ostre zapalenie ślinianki oraz pierwszy epizod nawracającego zapalenia ślinianek przyusznych





Fig. 2. Chronic recurrent parotitis in ultrasound – hypoechoic foci

Ryc. 2. Obraz przewlekłego nawrotowego zapalenia ślinianki przyusznej w badaniu ultrasonograficznym – hypoechoiczne ogniska

unilateral parotitis). Some children have been diagnosed with more than one comorbidity. Parotitis had always preceded the onset of additional symptoms, which were the basis for the diagnosis of other conditions. The comorbidities, along with the frequency of recurrences and localization of parotitis are presented in table 1.

The exacerbations of chronic recurrent parotitis that were accompanied with fever and severe, painful swelling were treated with antibiotics. In 9 children who had experienced 5 or more recurrences, sialography of the affected gland was performed as not only a diagnostic method, but also as a possible therapeutic mean.

None of the patients suffered from sialolithiasis nor pneumoparotitis.

## DISCUSSION

Parotitis can occur in children of any age. Acute parotitis may occur as early as in the first months of life and does not have a specific peak age. The 7 patients admitted to our Clinic were aged from 1 month to 15 years. Main etiological factor in this group was *Staphylococcus aureus* bacteria in 6 patients and EBV virus in 1 child, which is confirmed by the literature (1, 2). Clinical signs and symptoms, in addition to painful unilateral or bilateral swelling, included fever of varying degree, as well as elevated inflammatory markers (2). An abscess of the gland frequently occurs, which requires surgical intervention (2). Antibiotic therapy is the treatment method of choice (2). In children with acute parotitis in our study group, no recurrences were observed.

Chronic recurrent parotitis is characterized by a pronounced peak age of ca. 3-4 years of age, when the first episode occurs, which is consistent with our findings (fig. 1). In the literature, the prevalence of this condition is mar-

zapażeniem stwierdzono dodatnio miano przeciwciał ANA. W badaniu USG ślinianek u wszystkich 20 dzieci stwierdzono hipoechogeniczne ogniska odpowiadajcym poszerzeniu dystalnych odcinków przewodów ślinowych (ryc. 2).

Częstość nawrotów była różna: 6 dzieci miało 2 epizody, 4 dzieci – 3 epizody, 1 dziecko – 4 epizody, 2 dzieci – 5 epizodów, 7 dzieci – kilkanaście epizodów, w tym 3 dzieci kilka epizodów w roku. Dzieci z nawracającymi zapaleniami ślinianek pojawiają się okresowo w Klinice w okresach nawrotów oraz pozostają pod stałą opieką ambulatoryjną laryngologa. W trakcie obserwacji z powodu nawracających zapaleń ślinianek rozpoznano inne choroby o podłożu autoimmunologicznym u 12 dzieci (60%; u 10 pacjentów – 91% – z obustronnym zapaleniem ślinianek i u 2 pacjentów – 22% – z zapaleniem jednostronnym). U niektórych dzieci rozpoznano kilka chorób towarzyszących. Zapalenie ślinianek zawsze wyprzedzało pojawienie się dodatkowych objawów, które były podstawą do rozpoznania innych schorzeń. Zestawienie tych chorób wraz z częstością nawrotów oraz lokalizacją zmian w śliniankach obrazuje tabela 1.

Nawracające zapalenia ślinianek przyusznych w momentach zaostrzeń przebiegających z podwyższoną temperaturą ciała i dużym, bolesnym obrzękiem leczono antybiotykiem. U 9 dzieci z 5 lub więcej nawrotami w okresie pomiędzy epizodami zapalenia wykonano sialografię zajętej ślinianki z intencją nie tylko diagnostyczną, ale także leczniczą.

W żadnym przypadku nie stwierdzono kamicy gruczołu oraz pneumoparotitis.

## DYSKUSJA

Zapalenie ślinianek przyusznych u dziecka może wystąpić w każdym wieku. Ostre zapalenie ślinianek może wystąpić już w pierwszych miesiącach życia i nie ma charakterystycznego szczytu zachorowań w określonym wieku. 7 pacjentów przyjętych do naszej Kliniki było w wieku od 1 miesiąca do 15 lat. Głównym czynnikiem etiologicznym były bakterie *Staphylococcus aureus* u 6 pacjentów i wirus EBV u jednego pacjenta, co znajduje swoje potwierdzenie w literaturze (1, 2). Objawy kliniczne, poza bolesnym jedno- lub obustronnym obrzękiem ślinianek, to m.in. gorączka o różnym nasileniu oraz podwyższone parametry stanu zapalnego (2). W obrębie ślinianki często powstaje ropień wymagający interwencji chirurgicznej (2). Leczeniem z wyboru jest antybiotykoterapia (2). W grupie dzieci z ostrym zapaleniem ślinianek nie obserwowaliśmy nawrotów.

Nawracające zapalenie ślinianek przyusznych charakteryzuje się wyraźnym szczytem zapadalności przypadającym na okres około 3.-4. roku życia, kiedy pojawia się pierwszy epizod, co znalazło potwierdzenie także w naszym badaniu (ryc. 1). W literaturze wśród pacjentów z tym schorzeniem nieznacznie przeważa płeć męska, czego nie potwierdzono w analizowanym materiale (10 chłopców i 10 dziewczynek) (2, 9, 11). Pomimo znacznego obrzęku ślinianki z towarzyszącym bólem i w nielicznych przypadkach podwyższeniem temperatury ciała nie stwierdza się podwyższonych parametrów stanu

**Tab. 1.** Autoimmune comorbidities in children with chronic recurrent parotitis and frequency of recurrences and localizations of parotitis; CRP – chronic recurrent parotitis

Onset of CRP	Number of recurrences	Localization	Comorbidities	Autoimmune diseases in family history
6 years	2	bilateral	asthma	-
5 years	4	bilateral	allergic rhinitis	-
4 years	2	bilateral	asthma idiopathic arthritis suspected Sjögren syndrome	-
5 years	12	bilateral	Hashimoto's thyroiditis diabetes mellitus celiac disease	-
4 years	4	bilateral	alopecia areata	-
4 years	4	bilateral	Hashimoto's thyroiditis	-
8 years	3	bilateral	diabetes mellitus	-
10 years	2	bilateral	allergic rhinitis connective tissue disease – under diagnostics	-
16 years	2	bilateral	Graves' disease lupus-like syndrome immune thrombocytopenic purpura	-
7 years	7 (3/year)	bilateral	-	rheumatoid arthritis Hashimoto's thyroiditis
3 years	5	bilateral	hypothyroidism	-
2 years	2	unilateral	systemic sclerosis	-
2 years	2	unilateral	autoimmune hemolytic anemia	celiac disease Hashimoto's thyroiditis

ginally higher in males, which was not confirmed in our analyzed material (10 boys and 10 girls) (2, 9, 11). Despite significant swelling of the parotid gland with accompanying pain and, in rare cases, elevated body temperature, no elevated inflammatory markers are observed (white blood cells count, ESR, and CRP) (2, 9). Similar results were observed in our patients. Diagnostic method of choice is parotid ultrasound, showing characteristic lesions in the form of hypoechoic foci measuring a few millimeters of diameter (3, 4, 9-12), and these changes occurred in 100% of our patients. The patients periodically require anti-inflammatory treatment. In such cases in our study, antibiotic therapy brought relief as soon as in the 2nd day of treatment. It is thought that antibiotic therapy may prevent recurrence by inhibiting scar formation in the salivary ducts (2, 9-13). Children with bilateral chronic recurrent parotitis, in our material 11 patients, have an increased risk for autoimmune diseases and therefore, require constant endocrine, gastroenterological

zapalnego (liczby leukocytów, OB i CRP) (2, 9). Podobne wyniki uzyskaliśmy u naszych pacjentów. Badaniem diagnostycznym z wyboru jest ultrasonografia ślinianek, ukazująca charakterystyczny obraz hipoechogenicznych ognisk o średnicy kilku milimetrów (3, 4, 9-12), i takie zmiany wykazano u 100% naszych pacjentów. Chorzy okresowo wymagają leczenia przeciwpalnego. Antybiotykoterapia u tych dzieci objętych naszym badaniem przynosiła ulgę już w 2. dobie leczenia. Uważa się, że takie leczenie może zapobiegać nawrotom poprzez zapobieganie tworzeniu się możliwych blizn w obrębie przewodów (2, 9-13). Dzieci z nawracającym zapaleniem ślinianek przyusznych o lokalizacji obustronnej, których w naszym materiale było 11, mają zwiększone ryzyko występowania chorób autoimmunologicznych i wymagają stałej opieki endokrynologicznej, gastroenterologicznej i reumatologicznej. W naszym materiale choroby takie stwierdzono u 10 z 11 dzieci z obustronnym nawracającym zapaleniem (91%). Jedenaste dziecko, obecnie w wieku 7 lat, w tym miesiącu zgłosiło się do Kliniki. W wywiadzie stwierdzono rodzinne występowanie

**Tab. 1.** Występowanie chorób autoimmunologicznych u dzieci z nawrotowym zapaleniem ślinianek przyusznych wraz z częstością nawrotów oraz lokalizacją zmian; NZŚ – nawrotowe zapalenie ślinianek

Początek NZŚ	Liczba nawrotów	Lokalizacja	Choroby towarzyszące	Choroby autoimmunologiczne w rodzinie
6 r.ż.	2	obustronna	astma oskrzelowa	-
5 r.ż.	4	obustronna	alergiczny nieżyt nosa	-
4 r.ż.	2	obustronna	astma oskrzelowa zapalenie stawu biodrowego podejrzenie zespołu Sjögrena	-
5 r.ż.	12	obustronna	choroba Hashimoto cukrzyca celiakia	-
4 r.ż.	4	obustronna	łysienie plackowate	-
4 r.ż.	4	obustronna	choroba Hashimoto	-
8 r.ż.	3	obustronna	cukrzyca	-
10 r.ż.	2	obustronna	alergiczny nieżyt nosa choroba tkanki łącznej w trakcie diagnostyki	-
16 r.ż.	2	obustronna	choroba Gravesa-Basekowa zespół toczniopodobny samoistna małopłytkowość autoimmunologiczna	-
7 r.ż.	7 (3/rok)	obustronna	-	reumatoidalne zapalenie stawów choroba Hashimoto
3 r.ż.	5	obustronna	niedoczynność tarczycy alergiczny nieżyt nosa	-
2 r.ż.	2	jednostronna	stwardnienie guzowate	-
2 r.ż.	2	jednostronna	niedokrwistość autoimmunologiczna typu ciepłego	celiakia choroba Hashimoto

and rheumatology care. In our material, autoimmune disorders were diagnosed in 10 out of 11 children with bilateral chronic recurrent parotitis (91%). The eleventh child, currently aged 7 years, reported to the Clinic this month. Family history revealed cases of Hashimoto's thyroiditis and rheumatoid arthritis. The boy is currently undergoing diagnostics according to the outline presented above. In another 10 children, comorbidities such as diabetes mellitus type 1, celiac disease, and Hashimoto's thyroiditis, as well as isolated cases of alopecia areata and autoimmune anemia, were diagnosed. In 2 children, based on the clinical symptoms accompanying parotitis in the form of xerostomia and eye dryness, Sjögren syndrome was suspected. For this moment, immunochemical tests and histopathological examination had not confirmed the diagnosis in any of the cases. The children are under rheumatology care.

choroby Hashimoto oraz reumatoidalnego zapalenia stawów. Chłopiec jest w trakcie diagnostyki zgodnie z wyżej przedstawionym schematem. U pozostałych 10 dzieci rozwinęły się choroby takie jak cukrzyca typu I, celiakia czy choroba Hashimoto, a także pojedyncze przypadki łysienia plackowatego i niedokrwistości autoimmunologicznej. U 2 dzieci, na podstawie towarzyszących zapaleniom ślinianek objawów klinicznych pod postacią suchości błon śluzowych jamy ustnej i suchości oka, wysnuto podejrzenie zespołu Sjögrena. Badania immunohistochemiczne i badanie histopatologiczne w chwili obecnej nie potwierdziły rozpoznania. Dzieci pozostają pod opieką reumatologa.

## WNIOSKI

1. Zapalenie ślinianek przyusznych rozpoczynające się u dzieci około 3.-4. roku życia mogą być pierwszym epizodem nawracającego zapalenia ślinianek.



## CONCLUSIONS

1. Parotitis that have their onset between 3 and 4 years of age may be the first episode of recurrent parotitis.
  2. In case of relapses of parotitis, the diagnosis of chronic recurrent parotitis is based on clinical symptoms, characteristic ultrasound signs, and lack of elevated inflammatory markers in spite of swelling, pain and periodically elevated body temperature.
  3. Bilateral chronic recurrent parotitis is related to an increased risk of autoimmune diseases; chronic parotitis precedes their onset.
  4. Children with bilateral chronic recurrent parotitis require constant multispecialist care (endocrine, gastroenterological, and rheumatology) and periodic screening for autoimmune diseases.
2. W przypadku nawracających epizodów zapalenia ślinianek przyusznych rozpoznanie nawrotowego zapalenia ślinianek można postawić na podstawie objawów klinicznych, charakterystycznych zmian w badaniu ultrasonograficznym oraz prawidłowego poziomu parametrów stanu zapalnego w okresie zaostrzenia pomimo obrzęku, bólu i okresowo podwyższonej temperatury ciała.
  3. Obustronne nawracające zapalenie ślinianek przyusznych wiąże się ze zwiększonym ryzykiem wystąpienia chorób przewlekłych o charakterze autoimmunologicznym, których wystąpienie poprzedza zapalenie ślinianek.
  4. Dzieci z nawrotowym zapaleniem ślinianek przyusznych, szczególnie obustronnym, wymagają stałej kontroli wielospecjalistycznej (endokrynologicznej, gastroenterologicznej i reumatologicznej) i okresowych badań w kierunku chorób autoimmunologicznych.

## CONFLICT OF INTEREST KONFLIKT INTERESÓW

None  
Brak konfliktu interesów

## CORRESPONDENCE ADRES DO KORESPONDENCJI

\*Monika Jabłońska-Jesionowska  
Klinika Otolaryngologii Dziecięcej  
Warszawski Uniwersytet Medyczny  
ul. Żwirki i Wigury 63A  
02-091 Warszawa, Polska  
tel.: + 48 (22) 317-97-21  
e-mail: laryngologia@litewska.edu.pl

## submitted/nadesłano:

16.10.2017

## accepted/zaakceptowano do druku:

23.11.2017

## REFERENCES/PIŚMIENNICTWO

1. Baszki K, Tolb D: Recurrent parotitis as a presentation of primary pediatric Sjogren syndrome. *Pediatrics* 2012; 129(1): 179-182.
2. Shott SR: Salivary disease in children. In: Cotton RT, Myer ChM (eds.): *Practical pediatric otolaryngology*. 1st ed., Lippincott-Raven Publishers. Philadelphia 1999: 693-710.
3. Shkalim V, Monselise Y, Mosseri R et al.: Recurrent parotitis in selective IgA deficiency. *Pediatr Allergy Immunol* 2004; 15(3): 281-283.
4. Leerdam CM, Martin HCO, Isaacs D: Recurrent parotitis of childhood. *Journal of J Ped Child Health* 2005; 41(12): 631-634.
5. Martín-Granizo R, Herrera M, García-González D et al.: Pneumoparotid in childhood: report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1999; 57(12): 1468-1471.
6. Moëne KB, Cordero JT, Poli CH: Pneumoparotitis or pneumoparotid: a differential diagnosis to consider. *Rev Chilena Infectol* 2009; 26(6): 555-559.
7. Feure F, Plouin Gaucon I, Tavernier L et al.: A rare presentation of recurrent parotid swelling: self-induced parotitis. *Int J Ped Otol* 2009; 4: 29-31.
8. Akar HH, Patroglu T, Duman L: A selective IgA deficiency in a boy who presented recurrent parotitis. *Eur J Microbiol Immunol* 2014; 4(2): 144-146.
9. Zenk J, Schneidre H, Koch M et al.: Current management of juvenile recurrent parotitis. *Curr Otorhinolaryngol Rep* 2014; 2: 64-69.
10. Narsimha RVV, Putta BJH, Kurthukoti AJ: Juvenile recurrent parotitis in children: Diagnosis and treatment using sialography. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 2014; 32(3): 262-265.
11. Schorr B, Mandel L: Diagnosing juvenile recurrent parotitis. *Case Reports. N Y State Dent J* 2016; 82(1): 36-39.
12. Capaccio P, Sigismund PE, Luca N et al.: Modern management of juvenile recurrent parotitis. *J Laryngol Otol* 2012; 126(12): 1254-1260.
13. Nahlieli O, Shacham R, Shlesinger et al.: Juvenile recurrent parotitis: a new method of diagnosis and treatment. *Pediatrics* 2004; 114(1): 9-12.
14. Roby BB, Mattingly J, Jensen EL et al.: Treatment of juvenile recurrent parotitis of childhood: an analysis of effectiveness. *JAMA Otol Head Neck Surg* 2015; 141(2): 126-129.