

KAROLINA RACZKOWSKA-ŁABUDA, MONIKA JABŁOŃSKA-JESIONOWSKA, JOLANTA JADCZYSZYN,  
MAGDALENA FRĄCKIEWICZ, MACIEJ PILCH, \*LIDIA ZAWADZKA-GŁOS

## Self-induced pneumoparotitis – a rare case report

*Pneumoparotitis* wywołany autogennie – opis przypadku rzadkiego schorzenia

Department of Paediatric Otolaryngology, Medical University of Warsaw  
Head of Department: Associate Professor Lidia Zawadzka-Głos, MD, PhD

### KEYWORDS

pneumoparotitis, pneumoparotiditis,  
pneumatocele, parotid gland,  
Stensen's duct

### SUMMARY

Pneumoparotitis (pneumoparotiditis, pneumosialoadenitis) is a rare and frequently misdiagnosed condition. Signs of subcutaneous emphysema in parotid gland, the neck or the mediastinum are alarming symptoms that should be promptly addressed. Computed tomography, which is the gold diagnostic standard, may be successfully replaced with ultrasonography in the paediatric population. Sialography has a complementary role in the imaging of the gland, and allows for parotid duct irrigation to remove deposits and prevent recurrent inflammation. The paper presents a case of a 12-year-old boy who deliberately inflated his both parotid glands for about 6 months, and thus developed parotid pneumatocele with a diameter of about 25 mm. Diagnostic imaging was extended to include autoimmune diseases. Detailed family history was obtained. Conservative treatment, including dexamethasone irrigation of the Stensen's duct, was used and the symptoms fully resolved. A 3-month follow-up showed no increase in the size of pneumatocele or episodes of parotiditis.

### SŁOWA KLUCZOWE

*pneumoparotitis, pneumoparotiditis,*  
*pneumocela, przyusznicza,*  
*przewód Stenona*

### STRESZCZENIE

*Pneumoparotitis (pneumoparotiditis, pneumosialoadenitis)* to schorzenie rzadkie i często błędnie diagnozowane. Cechy odmy podskórnej w rzucie przyuszniczy, szyi czy śródpiersia należą do niepokojących objawów, które bezzwłocznie należy wyjaśnić. Badanie TK stanowiące złoty standard diagnostyczny można w populacji dziecięcej z powodzeniem zastąpić badaniem USG. Sialografia stanowi dopełnienie obrazowania gruczołu i daje szansę na irygację przewodów ślinianki z zalegających złogów – w prewencji nawracających stanów zapalnych. W artykule przedstawiono przypadek 12-latka, który świadomie, przez około pół roku, wypełniał obie przyusznicze powietrzem, wytwarzając pneumocela prawego gruczołu o średnicy ok. 25 mm. Diagnostykę obrazową rozszerzono o badania z grupy chorób autoimmunologicznych. Przeprowadzono szczegółowy wywiad rodzinny. Zastosowano leczenie zachowawcze, w tym irygację przewodu Stenona deksametazonem, uzyskując pełne wycofanie objawów. W 3-miesięcznej obserwacji nie stwierdzono powiększenia pneumocela ani epizodu parotiditis.

## INTRODUCTION

The parotid glands should be impalpable in children. Noticeable facial asymmetry and unilateral or bilateral oedema are usually associated with parotid pathology. The most common causes include infection, autoimmune or lymphoproliferative diseases, duct obstruction, as well as benign or malignant tumours. Rapidly growing oedema is a typical outcome of viral infection or chronic, recurrent parotitis.

The term “pneumoparotid” refers to the presence of air in either the parotid gland or the Stensen’s duct (1, 2). Pneumoparotiditis is a parotitis secondary to a retrograde pathogen invasion through the duct orifice, which is dilated as a result of barotrauma (3). The presence of pneumoparotid in the absence of pneumoparotiditis is unlikely due to the diversity of oral flora. The co-existence of secondary inflammatory oedema often leads to a misdiagnosis of simple parotitis.

Patients at risk of pneumoparotitis include wind instrument players and adults with mental disorders (4, 5). Most patients are aware of their ability to inflate the gland. Patients with unintentional parotid gland inflation pose a greater diagnostic challenge.

## CASE REPORT

A 12.5-year-old boy was admitted in an emergency to the Department of Paediatric Otolaryngology, Medical University of Warsaw, due to a swelling in the right cheek. About 1.5 days earlier, he completed a 7-day course of oral clindamycin for parotitis. The diagnosis and the treatment were suggested in the Department of Otolaryngology of another centre, where the patient had stayed for 5 days prior to outpatient treatment. At that time, salivary gland ultrasound showed inflammation of the gland and a cyst in the mandibular angle. Head CT was performed (fig. 1, 2).

The findings were as follows: “A 23 mm space filled with air in the right parotid region, below the external auditory canal, in the projection of the salivary gland; air is also present in the salivary ducts of the right parotid gland and the parotid duct. On the left, air is present in the parotid duct and salivary ducts within the gland. Cervical lymphadenopathy up to 21 mm. Positive intra-oral pressure causes dilation of both the salivary ducts and the right-sided gas-filled space. The CT image most likely corresponds to a cyst drained through a fistula to salivary ducts, with a leaking orifice and air reflux into the salivary glands”. Buccal oedema located directly under the right ear lobe again increased rapidly, causing moderate pain in the child. Inflammatory markers on admission were normal: CRP < 0.5, WBC 8.59 thous., LYMF 34.3% (N: 24.7-56.0%), NEUT 56.3% (N: 43-65%), MONO 6.6% (N: 4.4-12.3), EOSINO 2.4% (N: 0.0-4.4%). Body temperature was 36.6°C. Otolaryngological examination showed no evacuation of pathological content from the dilated orifice of the gland, but only normal secretion containing air bubbles. Emergency ultrasound findings were

## WSTĘP

Ślinianki przyuszne u dzieci nie powinny być wyczuwalne w badaniu palpacyjnym. Zauważalna asymetria twarzy bądź jedno- lub obustronny obrzęk najczęściej związane są z obecnością patologii w obrębie przyusznicy. Wśród najczęstszych przyczyn należy wymienić: infekcje, choroby z grupy autoimmunologicznych, limfoproliferacyjnych, obstrukcje przewodów oraz guzy łagodne lub złośliwe. Szybko narastający obrzęk to typowo wynik infekcji wirusowej lub przewlekłego, nawracającego zapalenia ślinianek.

Termin „pneumoparotid” oznacza obecność powietrza w obrębie mięszu gruczołu lub przewodu wyprowadzającego Stenona (1, 2). *Pneumoparotiditis* to zapalenie ślinianki na bazie wstecznej inwazji patogenów przez poszerzone, w wyniku barotraumy, ujście przewodu (3). Ze względu na bogactwo flory jamy ustnej, mało prawdopodobne jest występowanie *pneumoparotid* bez *pneumoparotiditis*. Natomiast współwystępowanie wtórnego obrzęku zapalnego często prowadzi do błędnego rozpoznania prostego zapalenia ślinianki.

Do grupy ryzyka *pneumoparotiditis* należą muzycy instrumentów dętych oraz dorośli z zaburzeniami psychicznymi (4, 5). Większość chorych jest świadoma swojej umiejętności wypełnienia gruczołu powietrzem. Większe wyzwanie diagnostyczne stanowią chorzy, u których proces ten zachodzi bezwiednie.

## OPIS PRZYPADKU

Chłopiec w wieku 12,5 roku został przyjęty na Oddział Otolaryngologii Dziecięcej WUM w trybie pilnym z powodu obrzęku prawego policzka. Półtora dnia wcześniej pacjent zakończył 7-dniową doustną terapię zapalenia ślinianki klindamycyną. Diagnozę i terapię zaproponowano na oddziale laryngologii innego ośrodka, w którym chory przebywał 5 dni poprzedzające leczenie w trybie ambulatoryjnym. W ówczesnie wykonanym badaniu USG ślinianki opisano stan zapalny gruczołu oraz jego torbiel w okolicy kąta żuchwy. Wykonano TK głowy (ryc. 1, 2).

Opisano: „W okolicy przyusznej, po stronie prawej, poniżej przewodu słuchowego zewnętrznego, w rzucie ślinianki widoczny zbiornik gazu o średnicy 23 mm, gaz widoczny jest także w przewodach ślinowych prawej ślinianki przyusznej oraz w przewodzie śliniankowym. Po stronie lewej gaz widoczny jest w przewodzie śliniankowym oraz w przewodach ślinowych w obrębie ślinianki. Widoczne powiększone węzły chłonne szyi do 21 mm. Przy dodatkim ciśnieniu w jamie ustnej zarówno przewody ślinowe, jak i zbiornik gazu po stronie prawej ulegają poszerzeniu. Obraz TK odpowiada najpewniej zdrenowanej torbieli przez przetokę do przewodów ślinowych, przy nieszczelnym ujściu i cofaniu się wstecznie powietrza do ślinianek”. Obrzęk policzka, zlokalizowany bezpośrednio pod płatkim prawej małżowiny usznej, narósł ponownie w sposób gwałtowny, wywołując u dziecka umiarkowane dolegliwości bólowe. Przy przyjęciu wykładniki stanu zapalnego nie



Fig. 1. CT in a patient with pneumoparotid. A dilated Stensen's duct and a pneumatocele in its distal part may be seen on the right

Ryc. 1. TK pacjenta z *pneumoparotid*. Widoczny poszerzony przewód Stenona oraz pneumocele w końcowym jego odcinku po stronie prawej

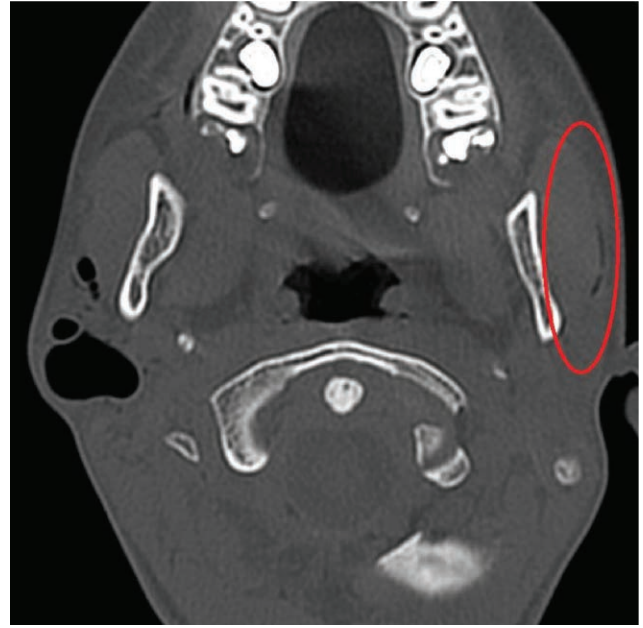


Fig. 2. CT in a patient with pneumoparotid. A dilated Stensen's duct on the left

Ryc. 2. TK pacjenta z *pneumoparotid*. Widoczny poszerzony przewód Stenona po stronie lewej

as follows: "Both parotid glands are not enlarged, but show inhomogeneous parenchymal echostructure, without any focal lesions. A slight amount of air in the left parotid duct; a large amount of air and a small amount of fluid (about 6-5 cm) in the right parotid gland. Slightly increased vascularity in the right parotid gland. Mild reactive lymphadenopathy up to approx. 24 x 7 mm at both submandibular areas. No oedema of the surrounding tissue". Based on the clinical picture and medical history, IV Amoxiclav was included by the doctor on duty. The boy admitted that during the past months he "played" by inflating both parotid glands. Initially, the dilation of the distal end of the duct was unnoticeable, and the resistance during gland insufflation was high. With time, however, the boy was able to develop a 27-mm-long pneumatocele. He also reported that he derived much joy from the "bubbling sensation" during air evacuation.

According to the patient's mother, the boy had a history of 2 episodes of right-sided parotitis. Purulent discharge from the Stensen's duct was observed each time. Both infections were developed in the last 6 months.

At the time of admission, the patient was under outpatient immunological, gastroenterological and cardiological care. He complained of a few-minute episodes of intra-abdominal pain unrelated to food ingestion for several years. His mother confirmed the lack of appetite, extended chewing time and difficulties swallowing solid foods. Percentile charts were difficult to develop due to the lack of measurements. At examination, the boy's body weight of 31 kg corresponded to the third percentile (25<sup>th</sup> percentile

odbiegały od normy: CRP < 0,5, WBC – 8,59 tys., LYMF – 34,3% (N: 24,7-56,0%), NEUT – 56,3% (N: 43-65%), MONO – 6,6% (N: 4,4-12,3), EOSYNO – 2,4% (N: 0,0-4,4%). Temperatura ciała wynosiła 36,6°C. W badaniu ORL nie obserwowano ewakuacji treści patologicznej z poszerzonego ujścia gruczołu, jedynie prawidłową wydzielinę z pęcherzykami powietrza. W dyżurowo wykonanym badaniu USG opisano: „Obie ślinianki przyuszne nie są powiększone, ale mają niejednorodną echostrukturę mięszu, bez zmian ogniskowych. Po stronie lewej niewielka ilość powietrza w przewodzie ślinianki, po stronie prawej duża ilość powietrza w rzucie ślinianki oraz niewielka ilość płynu, ok. 6-5 mm. Ślinianka przyuszna prawa z nieznacznie zwiększonym unaczynieniem. W obu okolicach podżuchwowych nieznacznie powiększone odczynowo węzły chłonne, do ok. 24 x 7 mm. Tkanki wokół ślinianek bez cech obrzęku”. Ze względu na obraz kliniczny i dane z wywiadu, jako profilaktykę *parotiditis* lekarz dyżurny Oddziału włączył do leczenia Amoksiklav *i.v.* Chory przyznał, że w ostatnich miesiącach „bawił się”, nadmuchując sobie obie ślinianki. Początkowo rozdęcie końcowego odcinka przewodu było niezauważalne, a opory napełniania gruczołu duże. Z czasem chłopiec „wypracował” pneumocele długości około 27 mm. Zeznał, że wrażenie „buzowania” przy opróżnianiu zmiany z powietrza sprawiało mu dużo radości.

Według deklaracji mamy, chłopiec dwukrotnie przechodził zapalenie przyusznicę po stronie prawej. Za każdym razem obserwowano wyciek treści ropnej z ujścia przewodu Stenona. Obie infekcje miały miejsce w ostatnim półroczu.

at 5 years old), and his height of 149 cm corresponded to the 25<sup>th</sup> percentile (27<sup>th</sup> at 5 years old). The mother reported recurrent URTIs, allergy (no allergen test or treatment), gastroesophageal reflux disease (no medical records or treatment) and excluded celiac disease (again no records). Family history additionally revealed that the boy's father was diagnosed with and treated for Barrett's oesophagus.

Laboratory tests were run at the Department to evaluate total IgE, serum and urine amylase, anti-TPO, TSH, ANA, ANCA, Ig A, Ig M, Ig G, EBV, CMV, RF, CRP, and complete blood cell count. Abnormal findings were reported for total IgE – 163 kU/L (N: 0-100). The above mentioned ultrasound was performed.

The patient was qualified for bilateral sialography. The procedure was performed under local anaesthesia: "Contrast agent (Imeron) was administered through a catheter inserted into the right parotid duct – the dilated parotid duct was filled; several smaller spaces in the distal part of the duct and one significantly larger space were also filled. Contrast agent evacuation from these spaces was spontaneous (fig. 3). This was followed by contrast agent (Imeron) administration through a catheter inserted into the left parotid duct – the parotid duct, which gave off branches in its distal dilated part, was filled with contrast agent (fig. 4)".

A decision was made during the examination to qualify the patient for intraductal administration of dexamethasone. Bilateral irrigations were performed every day until the child declared distension-related pain. Treatment outcomes were monitored based on salivary gland ultrasonography and the decreasing volumes of drug that could be introduced without tissue resistance. Initially, 5 and 3 mL of solution were introduced into the right and the left duct, respectively. The treatment was completed after 6 days,

Pacjent w chwili przyjęcia pozostawał pod opieką poradni immunologicznej, gastroenterologicznej i kardiologicznej. Od kilku lat skarżył się na bóle śródbrzusza trwające kilka minut, bez związku z przyjmowanymi pokarmami. Mama dziecka potwierdziła brak apetytu syna, wydłużony czas przeżuwania posiłków i „kłopoty z przetykaniem” pokarmów stałych. Siatki centylowe były trudne do oznaczenia ze względu na brak pomiarów. W chwili badania masa ciała chłopca: 31 kg, lokowała się na 3. centylu (w 5. r.ż. na 25. c), a wysokość ciała: 149 cm, na 25. centylu (w 5. r.ż. na 75. c). Mama zwracała uwagę na nawracające infekcje GDO u chłopca, alergię (bez oznaczenia alergenów i bez leczenia), GERD (bez dokumentacji, bez leczenia) oraz wykluczoną celiakię (również brak dokumentacji). Dodatkową informacją z wywiadu rodzinnego było ustalenie, że u ojca chłopca rozpoznano i leczono przełyk Barretta.

Na Oddziale pobrano badania laboratoryjne celem oznaczenia: IgE całkowitego, amylazy w surowicy i moczu, anti-TPO, TSH, ANA, ANCA, IgA, IgM, IgG, EBV, CMV, RF, CRP, morfologii. Nieprawidłowy wynik uzyskano dla poziomu IgE całkowitego – 163 KU/L (N: 0-100). Wykonano badanie USG, którego opis zacytowano wyżej.

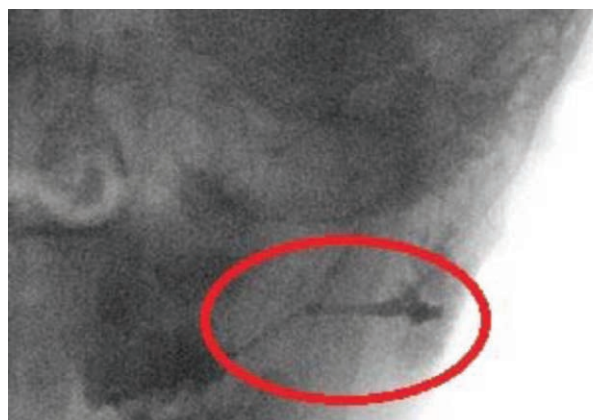
Pacjent został zakwalifikowany do sialografii obustronnej. Zabieg wykonano w znieczuleniu miejscowym: „Podano kontrast (Imeron) przez cewnik założony do przewodu ślinianki przyusznej prawej – wypełniono szeroki przewód ślinianki, w dystalnej części przewodu wypełniło się kilka drobnych przestrzeni oraz jedna znacznie większa od pozostałych. Przestrzenie te samoistnie opróżniają się z kontrastu (ryc. 3). Następnie podano kontrast (Imeron) przez cewnik założony do przewodu ślinianki przyusznej lewej – wypełniono przewód ślinianki, rozgałęziający się w części dystalnej, która jest poszerzona (ryc. 4)”.

W trakcie badania zakwalifikowano chłopca do doprzedowego podania deksametazonu. Irygacje powtarzano



**Fig. 3.** Right parotid fistulography. Dilated duct and a contrast-enhanced cistern at its end are seen

**Ryc. 3.** Fistulografia ślinianki przyusznej prawej. Widoczny poszerzony przewód oraz zbiornik, w jego końcowym odcinku, wypełniony kontrastem



**Fig. 4.** Left parotid fistulography. A dilated duct, mainly in its distal portion, is seen

**Ryc. 4.** Fistulografia ślinianki przyusznej lewej. Widoczny poszerzony przewód – głównie w odcinku dystalnym

when the radiologist reported a non-dilated right parotid duct (1.5 mL for the right and 0.5 mL for the left side) (fig. 5).

Ultrasound findings were as follows: "Both parotid glands of normal size, but showing inhomogeneous, abnormal parenchymal echostructure (more pronounced in the right gland), with no focal lesions. A lesion filled with air, 5 mm in diameter, and a duct (about 9 mm in length) filled with air, running from the ear lobe to the upper pole of the parotid gland, are present subcutaneously, near the upper pole of the right parotid gland. The parotid duct is not dilated. No parotid gland inflammation was detected. Minor reactive lymphadenopathy is present at both submandibular areas, more pronounced on the right side, up to about 21 mm, compared to the left side (14 mm). Periparotid tissues unremarkable. Submandibular salivary glands and the thyroid are normal".

In cooperation with the doctors in the Department of Gastroenterology, the patient was qualified for gastroscopy with oesophageal biopsy to exclude eosinophilic esophagitis (EoE). Normal macroscopic and histopathological findings were obtained.

The 12-year-old boy was discharged the following day, instructed to follow intensive oral hygiene routine and incorporate acidic products in the diet. The boy was instructed to avoid intentional parotid insufflation, chewing gums, whistling and playing wind instruments. A 3-month follow-up showed no increase in the size of pneumatocele or episodes of parotitis.

## DISCUSSION

The following terms are used in literature to refer to the presence of air in the parotid gland: pneumoparotitis (6), pneumoparotiditis (7, 8), pneumosialoadenitis (9), surgical mumps or anaesthesia mumps (10), and pneumatocele glandulae parotis (11-13). Currently, the term pneumoparotitis is

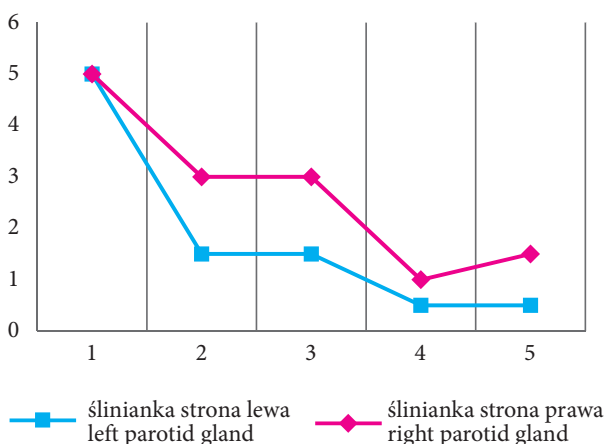


Fig. 5. Dexamethasone volumes administered in both parotid ducts

Ryc. 5. Podawane objętości deksametazonu do światła przewodów obu przyusznicy

codziennie, obustronnie, do momentu deklaracji przez dziecko wrażeń bólu przez rozpieranie. Efekt leczenia monitorowano przy użyciu badania USG ślinianek oraz obserwację zmniejszających się objętości leku możliwych do aplikacji bez oporu tkanki. Początkowo podano 5 ml roztworu po stronie prawej i 3 ml po stronie lewej. Iniekcje zakończono w momencie, w którym radiolog opisał nieposzerzony przewód prawej przyusznicy – po 6 dniach (użytkując 1,5 ml po stronie prawej i 0,5 ml po stronie lewej) (ryc. 5).

W badaniu USG: „Obie ślinianki przyuszne w normie wielkości, ale mają niejednorodną, nieprawidłową echostrukturę mięszu (prawa bardziej), bez zmian ogniskowych. Podskórnice w okolicy górnego bieguna ślinianki przyusznej prawej widoczna jest zmiana wypełniona powietrzem o średnicy 5 mm i przewód (długości ok. 9 mm) wypełniony powietrzem, biegnący od płątka ucha do górnego bieguna ślinianki. Przewód ślinianki nieposzerzony. Nie stwierdzam stanu zapalnego w obrębie ślinianek przyusznych. W obu okolicach podżuchwowych nieznacznie powiększone są odczynowo węzły chłonne, bardziej po stronie prawej, do ok. 21 mm, po lewej – 14 mm. Tkanki wokół ślinianek bez zmian. Obraz ślinianek podżuchwowych i tarczycy jest prawidłowy”.

Wspólnie z lekarzami z Oddziału Gastroenterologii zakwalifikowano pacjenta do gastrokopii z biopsją przełyku celem wykluczenia eozynofilowego zapalenia przełyku (EoE). Uzyskano prawidłowy wynik zarówno w ocenie makroskopowej, jak i badania histopatologicznego.

Dwunastolatek został wypisany kolejnego dnia z zaleceniami intensywnej higieny jamy ustnej i spożywania dużej ilości kwaśnych produktów. Zakazano mu świadomego nadmuchiwanie ślinianek, żucia gumy, gwizdania i gry na instrumentach dętych. W 3-miesięcznej obserwacji nie stwierdzono powiększenia pneumocele ani epizodu *parotiditis*.

## DYSKUSJA

W literaturze można spotkać różne określenia na obecność powietrza w śliniance przyusznej: *pneumoparotitis* (6), *pneumoparotiditis* (7, 8), *pneumosialoadenitis* (9), ane-stezjologiczna/chirurgiczna świnka (10) czy pneumatocele przyusznicy (11-13). Obecnie autorzy skłaniają się ku nazwie *pneumoparotitis*, która – w przeciwieństwie do *pneumoparotiditis* – nie wskazuje na stan zapalny gruczołu.

*Pneumoparotid* może być związany z wykonywanym zawodem bądź wywołany autogennie. Bez względu na przyczynę powstania, schorzenie jest konsekwencją wzrostu ciśnienia w jamie ustnej i wstecznego przedostania się powietrza do światła przewodu Stenona i zrazików gruczołu. Może występować jednostronnie (11, 14, 15) bądź obustronnie (5, 6, 16) – często asymetrycznie, jak u naszego pacjenta.

W literaturze dominują przypadki autogennie wywołanego schorzenia zarówno przez dzieci, jak i przez dorosłych (5, 6, 11, 12, 14, 15, 17-19). Problem występuje

increasingly used, which does not indicate inflammation of the gland as opposed to pneumoparotiditis.

Pneumoparotid may be occupational or self-induced. Regardless of the aetiology, the condition is a consequence of increased intra-oral pressure and retrograde air flow into the Stensen's duct and gland lobules. It may be either unilateral (11, 14, 15) or bilateral (5, 6, 16) – often asymmetric, which was the case of our patient.

Self-induced cases of the disease among both children and adults are most common in literature (5, 6, 11, 12, 14, 15, 17-19). The problem usually occurs in the context of psychological and psychiatric disorders (4, 5, 20), traumatic events (22), nervous tics (14, 21), and a way to avoid school (5, 14) or even imprisonment (2). Cases of pneumoparotitis due to aggressive nose blowing (23), following spirometry (24), and sneezing with a blocked nose due to allergic rhinitis (25) have been described.

Under physiological conditions, the parotid gland is protected against retrograde invasion of pathogens, saliva or air by a system of mucosal folds covering the orifice, a slit-like shape of the orifice itself, the diameter of which is smaller than that of the Stensen's duct, and a mechanism responsible for closing the orifice of the duct in response to increasing intra-oral pressure. The mechanism involves increasing duct angulation by compressing the anterior edge of the masseter muscle with the cheek stretched and a simultaneous closure of the orifice by the buccinator (5, 6, 14, 20). Therefore, an increase in the intra-oral pressure above typical values, i.e. 2-3 mmHg (up to 150 mmHg in trumpet players (26)), buccinator hypotonia, masseter hypertrophy, deposits in the Stensen's duct impairing salivary flow, and dilated orifice (6, 14) promote pneumoparotid and pneumoparotiditis.

Pneumoparotitis most often manifests as salivary gland oedema with crepitation on palpation (3, 4). Foamy or purulent discharge from one or both parotid duct orifices may be observed (3, 4). Air bubbles coming from the duct are often observed during buccal palpation, which was also the case of our patient (3, 11, 12, 14). The skin over the gland may be warm and flushed. The tissue surrounding the gland does not have to be painful on palpation (27). Subcutaneous emphysema of the face and neck (3, 11, 21) and even pneumothorax (3, 5, 11, 28, 29) have been described in extreme cases. Sudden onset and short duration are typical of the disease (3, 18, 29). Additional history of blowing balloons, playing wind instruments or nervous tics helps make the correct diagnosis. Computed tomography, which clearly differentiates between air and deposits/calculus in the Stensen's duct, is the gold diagnostic standard (3, 4, 16). Recent research indicates that the imaging should be performed in a patient with inflated cheeks to increase sensitivity (3, 16). Ultrasonography may be performed as a preliminary study, especially in paediatric patients (3, 16, 29). Sialography usually shows a dilated Stensen's duct (29, 30); if chronic, recurrent pneumoparotitis is pres-

głównie w kontekście zaburzeń natury psychologicznej, psychiatrycznej (4, 5, 20), traumatycznych doznań (22), tików nerwowych (14, 21) czy sposobu na uniknięcie szkoły (5, 14), a nawet więzienia (2). Opisano rozwinięcie *pneumoparotitis* na skutek intensywnego dmuchania nosa (23), po badaniu spirometrii (24) i przy katarze siennym podczas kichania z zatkanym nosem (25).

W warunkach fizjologicznych, przed wsteczną inwazją patogenów, śliny czy powietrza, przysusnicę zabezpieczają: układ fałdów śluzówki zasłaniających ujście, szczelinowaty kształt samego ujścia, którego średnica jest mniejsza od średnicy przewodu Stenona oraz mechanizm zamykający ujście przewodu w sytuacji wzrostu ciśnienia w jamie ustnej. Mechanizm ten sprowadza się do zwiększenia kąta zagięcia przewodu gruczołu przez ucisk przedniego brzegu mięśnia żwacza, przy rozciągniętym policzku, z równoczesnym zamknięciem ujścia przez mięsień policzkowy (5, 6, 14, 20). Stąd wzrost wewnątrzustnego ciśnienia powyżej typowego 2-3 mmHg (u trębaczy nawet do 150 mmHg (26)), hipotonia mięśnia policzkowego, hipertrofia mięśnia żwacza, złogi przewodu Stenona upośledzające przepływ śliny czy poszerzone ujście naturalne (6, 14) promują powstanie *pneumoparotid* czy *pneumoparotiditis*.

Najczęściej *pneumoparotitis* prezentuje się jako obrzęk ślinianki z obecnymi przy palpacji krepitacjami (3, 4). Można zaobserwować pianistą bądź ropną wydzielinę z obu ujść przysusnicy lub jednego (3, 4). Często w trakcie palpacji policzka z ujścia wydobywa się bąbelkująca ślina – jak to miało miejsce u naszego pacjenta (3, 11, 12, 14). Skóra nad gruczołem może być ucieplona i zaczerwieniona. Okolica ślinianki nie musi być bolesna przy palpacji (27). W skrajnych przypadkach, o długotrwałym przebiegu, opisano występowanie odmy podskórnej w obrębie twarzy i szyi (3, 11, 21), a nawet *pneumothorax* (3, 5, 11, 28, 29). Charakterystyczne dla schorzenia są nagłe wystąpienie i krótki przebieg (3, 18, 29). Dodatkowo zebrany wywiad w kierunku dmuchania balonów, gry na instrumentach dętych bądź występowania tików nerwowych przybliży prawidłową diagnozę.

Złotym standardem w diagnostyce *pneumoparotitis* jest tomografia komputerowa, która jednoznacznie różnicuje obecność powietrza względem złągów/kamieni w świetle przewodu Stenona (3, 4, 16). Ostatnie badania wskazują na zasadność wykonania obrazowania z nadętymi policzkami, co zwiększa czułość metody (3, 16). Badanie USG jest również opcją wstępnego badania, a nawet wskazaną w populacji dziecięcej (3, 16, 29). W sialografii typowo uwidoczniony jest poszerzony przewód Stenona (29, 30), przy przewlekłym, nawracającym *pneumoparotitis* przewód może być rozdęty odcinkowo, nadając badaniu charakterystyczny wygląd „serdelków” (29, 30).

W leczeniu stosowane są zarówno metody zachowawcze, jak i chirurgia. W zmianach o małym nasileniu wystarczy postępowanie przeciwzapalne oraz antybiotykoterapia w profilaktyce nadkażenia bakteryjnego. Niezbędne jest

ent, ductal dilatation and characteristic “sausaging” may be observed (29, 30).

The treatment involves both conservative and surgical methods. Anti-inflammatory treatment and antibiotic therapy to prevent bacterial superinfection are sufficient for mild lesions. Psychologist or psychiatrist support may be needed to change unhealthy habits (5, 6, 14). Cheek compressors may be used in patients at an occupational risk of increased intra-oral pressure (3, 11, 19, 29).

Due to the short interval between recurrences in our patient, a decision was made to perform dexamethasone irrigation of the Stensen’s duct immediately after sialography and during the several days of in-patient follow-up. The aim of such management is to remove deposits, suppress inflammation and shrink the parotid duct (31-36). Ligation of the Stensen’s duct is the first-line surgical procedure. Parotidectomy is reserved for patients with high recurrence rates (2, 3, 4, 19).

## CONCLUSIONS

Although pneumoparotitis is a rare entity, it should be included in the differential diagnosis of recurrent parotitis. Parotid ultrasonography is a commonly used diagnostic method in the paediatric population due to the typical clinical picture facilitating the diagnosis, wide availability and relatively low costs. Sialography irrigation of the duct with steroid solution may be considered in the prevention of recurrent inflammation in the pneumatocele. Patient’s cooperation is needed to eliminate the habit of self-insufflation. It should be noted that most patients require conservative treatment, and surgery should be used in the case of previous treatment failure.

## REFERENCES/PIŚMIENICTWO

poinformowanie pacjenta o zakazie nadmuchiwania zmiany. Czasami w celu pozbycia się niepożądanych nawyków konieczne jest wsparcie psychologa lub psychiatry (5, 6, 14). U pacjentów zawodowo narażonych na wzrost ciśnienia w jamie ustnej można stosować opatrunki uciskowe policzka (ang. *cheek compressors*) (3, 11, 19, 29).

Ze względu na krótki okres pomiędzy nawrotami choroby u naszego pacjenta podjęto decyzję o irygacji przewodu Stenona roztworem deksametazonu bezpośrednio po wykonaniu sialografii oraz w trakcie kilku dni obserwacji szpitalnej. Postępowanie takie ma na celu usunięcie złogów, wyciszenie stanu zapalnego oraz obkurczenie przewodu przyuszniczego (31-36). W chirurgii postępowaniem pierwszego rzutu jest podwiązanie przewodu Stenona. Parotidektomia to metoda przeznaczona do procesów chorobowych o wysokim indeksie nawrotów (2, 3, 4, 19).

## WNIOSKI

Pomimo tego, że *pneumoparotitis* należy do chorób rzadkich, powinien być rozważany w diagnostyce różnicowej nawracającego zapalenia przyusznicy. W populacji dziecięcej ultrasonografia ślinianki przyusznej stanowi powszechnie stosowaną metodę diagnostyczną ze względu na charakterystyczny obraz zmiany przybliżający rozpoznanie, dużą dostępność badania i jego stosunkowo niski koszt. Sialografia z irygacją przewodu roztworem sterydu może być rozważana w prewencji nawracających stanów zapalnych wytworzonego pneumocele. Niezbędna jest chęć współpracy pacjenta nad wyeliminowaniem zwyczaju „nadmuchiwania” zmiany. Należy pamiętać, że większość chorych wymaga leczenia zachowawczego, a procedury chirurgiczne należy stosować w obliczu porażki dotychczasowych terapii.

## CONFLICT OF INTEREST KONFLIKT INTERESÓW

None  
Brak konfliktu interesów

## CORRESPONDENCE ADRES DO KORESPONDENCJI

\*Lidia Zawadzka-Głós  
Klinika Otolaryngologii Dziecięcej  
Warszawski Uniwersytet Medyczny  
ul. Żwirki i Wigury 63A, 02-091 Warszawa  
tel.: +48 (22) 317-97-21  
laryngologia@litewska.edu.pl

1. Zuchi DF, Silveira PC, Cardoso C de O et al.: Pneumoparotitis. *Braz J Otorhinolaryngol* 2011; 77(6): 806.
2. House LK, Lewis AF: Pneumoparotitis. *Clin Exp Emerg Med* 2018; 5(4): 282-285.
3. McGreevy AE, O’Kane AM, McCaul D, Basha SI: Pneumoparotitis: a case report. *Head Neck* 2013; 35(2): E55-59.
4. McCormick ME, Bawa G, Shah RK: Idiopathic recurrent pneumoparotitis. *Am J Otolaryngol* 2013; 34(2): 180-182.
5. Balasubramanian S, Srinivas S, Aparna KR: Pneumoparotitis with subcutaneous emphysema. *Indian Pediatr* 2008; 45: 58-60.
6. Markowitz-Spence L, Brodsky L, Seidell G: Self-induced pneumoparotitis in an adolescent. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1987; 14: 113.
7. Hemphill RA: Wind parotitis. *N Engl J Med* 1973; 289: 1094.
8. Calcatera TC, Lowe J: Pneumoparotitis: an unusual case of parotid gland swelling. *Arch Otolaryngol* 1973; 97: 468.
9. Brodie HA, Chole RA: Recurrent pneumosialadenitis: a case presentation and new surgical intervention. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1988; 98: 350-353.
10. Reilly DJ: Benign transient swelling of the parotid glands following general anesthesia: “anesthesia mumps”. *Anest Analg* 1979; 49: 560-563.
11. Luaces R, Ferreras J, Patiño B et al.: Pneumoparotid: a case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2008; 66: 362-365.

12. Martin-Granizo R, Herrera M, Garcia-Gonzalez D, Mas A: Pneumoparotid in childhood: report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1999; 57: 1468-1471.
13. Greisen O: Pneumatocele glandulae parotis. *J Laryngol Otol* 1968; 82: 447-480.
14. Gouguen LA, April MD, Karmody CS, Carter BL: Self-induced pneumoparotitis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1995; 121: 1426-1429.
15. Faure F, Poulin Gaudon I, Tavernier L et al.: A rare presentation of recurrent parotid swelling: Self-induced parotitis. *Int J Pediatr Otolaryngol* 2009; 4: 29-31.
16. Lasboo AA, Nemeth AJ, Russell EJ et al.: The use of the “puffed cheek” computed tomography technique to confirm the diagnosis of pneumoparotitis. *Laryngoscope* 2010; 120: 967-969.
17. Meerleer KD, Hermans R: Images in clinical radiology: pneumoparotitis. *JBR-BTR* 2005; 88: 248.
18. Grainger J, Saravanappa N, Courtney-Harris RG: Bilateral pneumoparotid. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2006; 134: 531-532.
19. Hann S, Isaacson G: Recurrent pneumoparotid: cause and treatment. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004; 131: 758-761.
20. Watt J: Benign swelling of parotid gland: a review. *Proc Royal Soc Med* 1970; 70: 483.
21. Gudlaugsson O, Geirsson AJ, Benediktsdottir K: Pneumoparotitis: a new diagnostic technique and a case report. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1998; 107: 356-358.
22. Prabhu SP, Tran B: Pneumoparotitis. *Pediatr Radiol* 2005; 38: 1144.
23. Birzgalis AR, Curley WA, Camphor CL: Pneumoparotitis, subcutaneous emphysema and pleomorphic adenoma. *J Laryngol Otol* 1993; 107: 377-379.
24. Kirsch DDM, Shinn J, Porzio R et al.: Pneumoparotid due to spirometry. *Chest* 1999; 116: 1475-1478.
25. Garber MW: Pneumoparotitis: an unusual manifestation of hayfever. *Am J Emerg Med* 1987; 5: 40-41.
26. Banks P: Nonneoplastic parotid swelling: a review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1968; 25: 732-745.
27. Ghanem M, Brown J, McGurk M: Pneumoparotitis: a diagnostic challenge. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2012; 41(6): 774-776.
28. Palau JR, Gonzalez-Lagunas J, Linares JG: Self-induced parotid and parapharyngeal emphysema. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2009; 38: 574.
29. Lagunas JG, Fuertes AF: Self-induced parapharyngeal and parotid emphysema: A case of pneumoparotitis. *Oral and Maxillofacial Surgery Cases* 2017; 3(4): 81-85.
30. Mandel L, Kaynar A, Wazen J: Pneumoparotid: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72: 22-24.
31. Premnath KPB, Thomas J, Ray B, Jayakrishnan V: Multimodality diagnostic features and treatment by sialography of juvenile recurrent parotitis: a case report. *Int J Scientific Study* 2016; 8(4): 176-178.
32. Zenk J, Schneider H, Koch M, Iro H: Current management of juvenile recurrent parotitis. *Curr Otorhinol Rep* 2014; 2: 64-69.
33. Narsimha Rao VV, Putta Buddi JS, Kurthukoti AJ: Juvenile recurrent parotitis in children: Diagnosis and treatment using sialography. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 2014; 32: 262-265.
34. Nahlieli O, Shacham R, Shlesinger M, Eliav E: Juvenile recurrent parotitis: A new method of diagnosis and treatment. *Pediatrics* 2004; 114: 9-12.
35. Gary C, Kluka EA, Schaitkin B, Walvekar RR: Interventional sialendoscopy for treatment of juvenile recurrent parotitis. *J Indian Assoc Pediatr Surg* 2011; 16: 132-136.
36. Ramakrishna J, Strychowsky J, Gupta M, Sommer DD: Sialendoscopy for the management of juvenile recurrent parotitis: A systematic review and meta-analysis. *Laryngoscope* 2015; 125: 1472-1479.

submitted/nadesłano:

6.05.2019

accepted/zaakceptowano do druku:

27.05.2019