

Laporan Penelitian**Choristoma kartilaginosa pada lidah: kasus langka****Indra Zachreini***, **Faisal****, **Muhammad Najib Dahlan Lubis *****

*Satuan Medis Fungsional Ilmu Kesehatan Telinga Hidung Tenggorok-Bedah Kepala Leher
Fakultas Kedokteran Universitas Malikussaleh/Rumah Sakit Cut Meutia Aceh Utara

** SMF Patologi Anatomi Rumah Sakit Cut Meutia Aceh Utara

*** Departemen Patologi Anatomi Fakultas Kedokteran Universitas Sumatera Utara

ABSTRAK

Latar belakang: *Choristoma* adalah suatu pertumbuhan jaringan normal di daerah yang tidak semestinya. *Choristoma* kartilaginosa pada lidah adalah pertumbuhan tulang rawan normal, yang berbentuk seperti tumor, terdapat pada lidah, pertumbuhan lambat, berbatas tegas, dan bersifat jinak, yang berkembang dari jaringan tulang rawan yang matang. Kelainan ini jarang ditemukan. Etiologi dan patogenesisnya sampai saat ini belum jelas namun diduga terjadi akibat malformasi perkembangan, atau reaksi pasca trauma. **Tujuan:** Melaporkan satu kasus *choristoma* kartilaginosa pada lidah, yang jarang ditemukan. **Laporan Kasus:** Kasus langka ini ditemukan pada seorang wanita berusia 39 tahun dengan keluhan terasa ada benjolan di pangkal lidah. Pada pemeriksaan tampak massa tumor di pangkal lidah, bertangkai, tidak nyeri dan tidak mudah berdarah. Penatalaksanaan berupa eksisi bedah secara lengkap. Pemeriksaan histopatologi didapati *choristoma* kartilaginosa pada lidah. **Metode:** Penelusuran bukti kepustakaan menghasilkan 11 jurnal dan hanya 3 jurnal yang relevan. **Hasil:** Dari hasil 3 jurnal yang relevan dengan kasus yang kami laporkan, mempunyai kesamaan dalam lokasi dan penatalaksanaannya. **Kesimpulan:** *choristoma* kartilaginosa pada lidah merupakan lesi jinak yang jarang ditemukan.

Kata kunci: *Choristoma* kartilaginosa lidah, histopatologi, eksisi

ABSTRACT

Background: *Choristoma* is a tumor-like growth of normal tissue in unusual location/site. *Cartilaginous choristoma of the tongue* is a normal cartilage growth which shaped like a tumor; located in the tongue, slow growing, well defined, benign, developed from mature cartilage tissue. This disorder is rarely found. Up till now, the etiology and pathogenesis is still unsure, but it is assumed to be the result of developmental malformations or post traumatic reactions. **Purpose:** To report a rare case of cartilaginous choristoma of the tongue. **Case:** A 39 years old woman came with a lump at the base of her tongue. Physical examination found a stalked tumor mass in the tongue, which was painless, and not easily bled. Management of this lesion was a complete excision. Histopathology examination found a cartilaginous choristoma of the tongue. **Method:** Searching for literature evidence produced 11 journals, and only 3 journals were relevant. **Result:** From the 3 relevant journals, there were similarities on location and case management with this reported case. **Conclusion:** Cartilaginous choristomas of the tongue is a benign lesion of the tongue that is rarely found.

Keywords: *Dizziness Handicap Inventory, balance disorders, handicap*

Alamat korespondensi: Dr. dr. Indra Zachreini, Sp.T.H.T.K.L(K), SMF Ilmu Kesehatan Telinga Hidung Tenggorok Bedah Kepala dan Leher Fakultas Kedokteran Universitas Malikussaleh/Rumah Sakit Cut Meutia Aceh Utara. Email: indrazachreini@unimal.ac.id

PENDAHULUAN

Choristoma merupakan suatu pertumbuhan jaringan normal pada daerah yang tidak semestinya tumbuh. *Choristoma* kartilaginosa adalah suatu pertumbuhan jaringan tulang rawan yang normal pada lokasi yang tidak biasa (ektopik). *Choristoma* kartilaginosa pada lidah adalah lesi yang jarang, tumbuh dengan lambat, berbatas tegas, dan bersifat jinak yang berkembang dari jaringan tulang rawan yang matang.¹

Epidemiologi *choristoma* kartilaginosa pada lidah dapat terjadi pada usia 4 hingga 73 tahun, namun sering ditemukan pada usia 20 sampai 50 tahun, dengan usia rata-rata adalah 28,7 tahun. Frekuensi *choristoma* lingual adalah 2,7 sampai 4 kali lebih tinggi pada wanita dibanding pria.² Lokasi tersering ditemukan tumor ini adalah pada bagian sepertiga posterior lidah sebanyak 41 kasus (77%), pada bagian lateral lidah sebanyak 9 kasus (17%) dan pada bagian dua pertiga lidah sebanyak 3 kasus (6%).³ Predileksi pada lidah sering muncul pada posterior dorsum lidah dekat papila sirkumvalata, foramen sekum atau sepertiga bagian dorsum lidah. Namun tak jarang *choristoma* ini muncul pada mukosa bukal, regio submental, otot maseter dan regio submandibular.⁴

Etiologi *choristoma* lingual belum jelas, namun diduga 2 teori yang mempengaruhi terjadinya *choristoma* lingual yaitu teori malformasi perkembangan atau teori reaksi pasca trauma. *Choristoma* kartilaginosa pada lidah sering tidak menunjukkan gejala. Beberapa pasien mengeluhkan gejala seperti sensasi pembengkakan di tenggorok, globus faringus, disfagia, mual, muntah dan nyeri.⁵

Pada pemeriksaan klinis dijumpai tumor dengan ukuran yang bervariasi mulai 3 mm sampai 5 cm, dapat bertangkai atau tidak. Diagnosa banding tumor ini adalah tumor kelenjar ludah, fibroma, lipoma, tumor saraf, tumor sel datia dan kista jaringan lunak. Jika ditemukan kalsifikasi jaringan lunak

dan pembentukan tulang, diagnosa banding harus mencakup teratoma, osteoma, kelenjar getah bening yang terkalsifikasi, hamartoma osseous, dan osteolipoma. Bila lesinya terletak dekat dengan foramen sekum, maka didiagnosa banding dengan nodul tiroid lingual.⁶

Diagnosa *choristoma* kartilaginosa pada lidah dapat ditegakkan berdasarkan pemeriksaan biopsi eksisional jaringan yang diduga tumor dengan jarak 1-1,5 cm dari jaringan sehat.⁶ Gambaran histopatologi *choristoma* kartilaginosa pada lidah dapat menunjukkan adanya nodul tulang lamelar kortikal yang padat, dengan jaringan fibro adiposa dibawah epitel skuamosa bertingkat yang tampak jinak.³ Pemeriksaan penunjang lain adalah pemeriksaan sitologi eksfoliata dari spesimen kerokan pada lesi yang berupa bercak/superfisial, dilakukan pemeriksaan *toluidine blue* sebelum pemeriksaan biopsi untuk menentukan lokasi tumor yang berada di bawah epitel normal, MRI dimana invasi tumor ke dasar rongga mulut dapat dengan rinci dilihat pada potongan koronal. Potongan sagital memberikan informasi mengenai dasar lidah dan invasi karsinoma kearah faringeal yang sulit dilihat dengan pemeriksaan *CT-scan*¹.

Penatalaksanaan *choristoma* kartilaginosa pada lidah adalah dengan eksisi dengan pisau bedah, laser atau bedah elektronik. Angka rekurensi atau perubahan sel menjadi ganas belum pernah dilaporkan.⁷

Tujuan penulisan laporan kasus ini adalah mempresentasikan satu kasus yang jarang terjadi yaitu *choristoma* kartilaginosa pada lidah.

LAPORAN KASUS

Seorang wanita berusia 39 tahun datang ke poliklinik Ilmu Kesehatan Telinga Hidung Tenggorok Kepala Leher Fakultas Kedokteran Universitas Malikussaleh RSU. Cut Meutia

Aceh Utara dengan keluhan utama terasa ada benjolan di pangkal lidah sejak 1 bulan. Pasien mengeluh awalnya benjolan tersebut hilang timbul, kemudian menetap dan semakin membesar. Selain itu pasien juga mengeluh rasa haus, sulit menelan ketika makan, serta rasa sakit di leher bagian kiri. Keluhan mual, muntah, batuk, sulit bernafas dan nyeri tenggorok disangkal.

Pada pemeriksaan fisik didapatkan keadaan umum baik, kesadaran kompos mentis, tekanan darah 120/80 mmHg, nadi 78 kali/menit, pernafasan 20 kali/menit dan suhu tubuh 36,5°C. Pada pemeriksaan kavum oris tampak massa di sepertiga posterior, bentuk bulat tidak rata, berwarna putih abu-abu, bertangkai, tidak nyeri pada perabaan, konsistensi keras dan tidak mudah berdarah (gambar 1). Pasien direncanakan untuk biopsi eksisional untuk tindakan diagnostik dan terapi. Pemeriksaan darah pra-operasi dalam batas normal.

Dilakukan tindakan eksisi dengan anestesi umum menggunakan pisau bedah elektronik (kauter). Massa tumor dijepit dengan menggunakan klem, kemudian dilakukan eksisi berjarak $\pm 0,5$ cm dari tangkai tumor. Massa tumor diangkat dengan ukuran 1x1x0,5 cm (gambar 2). Luka eksisi dijahit dengan menggunakan benang *absorbable*.

Massa tumor dilakukan pemeriksaan histopatologi di KMF Patologi Anatomi RSUD Cut Meutia dan sebagian blok parafin di kirim ke Prof. dr. M. Nadjib Dahlan Lubis, Sp.PA(K) untuk konfirmasi. Hasil pemeriksaan histopatologi, makroskopis: satu potong jaringan dengan ukuran 1x1x0,5 cm, warna putih abu-abu, konsistensi keras padat seperti tulang rawan. Di proses sebagian dalam 2 *cup* 1 blok. Mikroskopis: sediaan dengan pelapis epitel gepeng berlapis dalam batas normal. Stroma terdiri dari proliferasi sel bentuk bulat, inti bulat padat letak di tengah, kromatin halus, sitoplasma banyak eosinofilik (kondrosit). Tidak dijumpai tanda-tanda keganasan. Kesimpulan: *choristoma kartilaginosa* pada lidah (gambar 3).

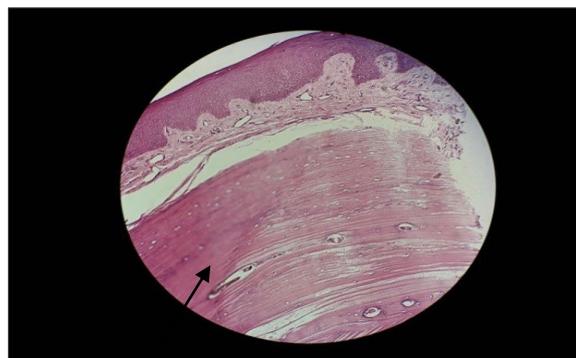
Pada hari ketiga pasca operasi, luka eksisi tertutup rapat, benang jahitan masih ada, tidak ada rasa nyeri. Pada hari ke sepuluh pasca operasi tidak tampak pembengkakan, nyeri dan luka operasi menutup sempurna.



Gambar 1. Massa tumor di pangkal lidah



Gambar 2. Jaringan *choristoma* lingual



Gambar 3. Pemeriksaan histopatologi massa tumor pada massa kolagen



Gambar 4. Pemeriksaan histopatologi massa tumor pada kondrosit

RUMUSAN MASALAH

Bagaimana menegakkan diagnosa *choristoma* kartilaginosa pada lidah?

METODE

Pencarian literatur dilakukan pada tanggal 22 Juli 2019, dengan kata kunci “*cartilaginous choristoma of the tongue*” dan “lingual” melalui *PubMed*, *ScienceDirect*, *Cochrane Library*, dan *Google Scholar* menghasilkan 11 jurnal. Kemudian dilakukan seleksi menggunakan kriteria inklusi sebagai berikut: 1) lokasi pada lidah, 2) usia diatas 20 tahun, 3) penatalaksanaan eksisi 4) tersedianya naskah lengkap. Kriteria eksklusi: massa tumor ukurannya dibawah 0,5x0,5x0,5 cm. Telaah kritis dilakukan pada 3 jurnal yang terpilih.

HASIL

Sasaki⁵ melaporkan kasus pasien wanita berusia 60 tahun dengan keluhan adanya massa di depan papila sirkumvalata di median dorsum lidah. Pasien tidak memiliki riwayat trauma dan peradangan kronis, dan tidak memiliki riwayat medis lainnya. Massa diangkat dengan operasi. Pemeriksaan *hematoxylin* dan bagian yang diwarnai dengan *eosin* mengungkapkan bahwa di bawah epitel skuamosa, terbentuk nodul kartilaginosa hialin dan dikelilingi oleh jaringan lemak yang tipis. Tidak ditemukan adanya jaringan

kelenjar ludah, atau komponen epitel dengan struktur duktus, atau *myxoid mesenchymal* dan jaringan *osseous*. Selain itu, peradangan adalah lesi minor, dan tidak ada atipia seluler. Analisis imunohistokimia mengungkapkan bahwa massa itu positif untuk protein S-100, dan negatif untuk antigen sitokin dan epitel membran. Tidak ada kekambuhan pada lesi ini.⁸

Pereira⁹ melaporkan kasus seorang wanita berusia 64 tahun dirujuk ke bagian *Otorhinolaryngology* karena tumor yang tumbuh lambat pada lidah, selama beberapa tahun. Tidak ada riwayat gangguan pada kesehatan sosial, dan keluarganya, dan pasien menyangkal adanya trauma atau proses inflamasi kronis pada bagian lidah tersebut. Eksisi bedah dilakukan dengan anestesi umum. Detail pemeriksaan klinis menunjukkan adanya lesi putih bulat nodular, tidak terlalu *mobile* dan konsistensi keras di daerah garis tengah lidah, pada sulkus terminalis, dengan diameter 5 mm, mukosa di atasnya sedikit meninggi tetapi utuh. Tidak terlihat adanya lesi lain di rongga mulut. Tidak ada kelenjar getah bening yang teraba membesar pada leher. Tumor seluruhnya dieksisi, difiksasi dengan formaldehida 10% dan direndam dalam parafin. Membran dipotong menjadi strip dengan lebar 5 mm, dan diwarnai dengan pewarnaan *Hematoxyline Eosin* (HE). Studi mikroskopis dari lesi menunjukkan tumor yang terdiri dari jaringan tulang rawan dikelilingi oleh matriks asam *mucopolysaccharide* dengan *chondroblast* khas, sel tersusun seperti sarang dan tanpa atipia. Terlihat ada jaringan adiposa dan tidak ditemukan adanya mitosis, nekrosis, atau jenis tulang lainnya.

Norris¹⁰ melaporkan kasus seorang wanita Somalia berusia 22 tahun dengan lesi yang mengganggu di permukaan bawah lidahnya. Dirasakan sekitar 6 bulan. Tidak ada riwayat kelainan medis dan sosialnya, dan pasien menyangkal trauma di daerah lidah tersebut. Pemeriksaan ekstraoral tidak

ditemukan kelainan. Pemeriksaan intraoral menunjukkan pertumbuhan gigi dan struktur jaringan lunak yang normal. Dasar mulutnya licin, tak ada pembengkakan atau edema, dan saluran saliva paten. Pemeriksaan terperinci pada lidah menunjukkan adanya massa 5x5 mm soliter, nodular, *mobile*, dan berbatas tegas tepat di sebelah kiri garis tengah pada permukaan ventral lidah. Massa memiliki rona keputihan di bawahnya, tetapi tidak ditemukan eritema atau tanda-tanda peradangan di sekitarnya. Mukosa di atasnya sedikit lebih tinggi tetapi utuh. Tidak ada lesi lain yang terlihat di rongga mulut. Biopsi eksisi lesi dilakukan dengan anestesi lokal. Spesimen yang dieksisi difiksasi dengan formalin *buffer* 10% dan direndam dalam lilin parafin. Bagian setebal 5 µm dipotong dan diwarnai dengan pewarnaan *Hematoxyline Eosin* (HE). Pemeriksaan histopatologis menunjukkan bahwa nodul itu terdiri dari jaringan kartilaginosa hialin matur, yang mengandung pulau-pulau kondrosit dewasa yang tertanam dalam stroma non-mineralisasi, basofilik lemah.

DISKUSI

Choristoma pada lidah mungkin dapat berasal dari berbagai jaringan, termasuk tulang, tulang rawan, adiposa, otak, jaringan pernapasan, atau jaringan pencernaan. Namun, *choristoma* kartilaginosa sangat jarang ditemukan dalam jaringan lunak rongga mulut. Kelainan di jaringan lunak ini dikaitkan dengan kelainan kromosom yang melibatkan bagian 12q13-q15.¹ Meskipun jarang, sebagian besar *choristoma* intraoral terjadi di daerah lidah, tetapi ada laporan lesi ini di mukosa bukal, langit-langit lunak, dan leher yang terkait dengan kista celah brakialis. Ditemukan pada usia berkisar 10 hingga 80 tahun saat didiagnosis, dengan rata-rata usia 47 tahun. Lima puluh delapan persen dari pasien adalah perempuan, dan ukuran massa berkisar dari <1 cm hingga beberapa sentimeter. *Choristoma* kartilaginosa paling

sering terjadi di dorsalis tengah lidah.²

Menurut Zegarelli yang dikutip oleh Heinz et al.² istilah *choristoma* kartilaginosa pada lidah harus digunakan hanya untuk lesi yang memiliki pertumbuhan *chondromatous* eksklusif. Namun, temuan histopatologis *choristoma* tulang rawan lidah sering dikaitkan dengan kehadiran jenis jaringan lain, seperti tulang dan jaringan adiposa. Dengan demikian, terjadinya *choristoma* tulang rawan lidah sangat jarang terjadi. Scivetti et al dianggap pertama kali mempublikasikan *choristoma* tulang rawan lidah pada tahun 2005.² Secara histologis, *choristoma* kartilaginosa menunjukkan diferensiasi variabel dari jaringan mesenkim, seperti tulang rawan dewasa, jaringan adiposa, atau jaringan tulang. Sangat sedikit laporan *choristoma* kartilaginosa murni, tanpa unsur adiposa atau jaringan tulang. Ada beberapa hipotesis tentang patogenesis *choristoma* kartilaginosa lingual berdasarkan fitur klinisnya. Selama perkembangan janin, tulang rawan berkontribusi sekitar 30% dari septum lingual, tetapi kemudian ini semakin menurun pada tahap selanjutnya. Transformasi atau resorpsi yang tidak lengkap dari jaringan tulang rawan embrionik dari septum lingual menjadi salah satu hal yang menjelaskan proliferasi *choristoma* murni di sepanjang garis tengah lidah.¹¹

Munculnya *choristoma* kartilaginosa pada lidah dapat mengindikasikan kemungkinan proliferasi etiologi dari sisa-sisa tulang rawan janin heterotopik. Meskipun temuan mikroskop optik sangat menunjukkan *choristoma* tulang rawan lidah, sebuah studi imunohistokimia penting untuk menyinkirkan diagnosis lain dan menguatkan hipotesis. Positivitas tinggi untuk protein S100 yang merupakan penanda sel mioepitelial, menunjukkan jaringan *chondromatous*. Diagnosis banding *choristoma* kartilaginosa adalah neoplasma kartilaginosa ganas, oleh karena itu diperlukan penilaian hati-hati dari temuan patologis. Dalam penelitian

Pereira,¹ didapati kondrosit bulat, dengan inti kecil, tersebar di matriks hialin. Tidak ada temuan keganasan seperti mitosis atipikal, binukleasi, nukleolus prominen, pleomorfik atau peningkatan sitoplasma. Pengobatan *choristoma* kartilaginosa pada lidah adalah eksisi sederhana. Tidak pernah ada laporan kekambuhan lesi ini.⁹

Dilaporkan kasus *choristoma* kartilaginosa lidah pada seorang wanita berusia 39 tahun, berupa benjolan di sepertiga posterior lidah. Massa berbentuk bulat tidak rata, berwarna putih abu-abu, bertangkai, tidak nyeri pada perabaan, konsistensi keras dan tidak mudah berdarah. Penatalaksanaan dengan tindakan eksisi dengan anastesi umum. Massa tumor berukuran 1x1x0,5 cm. Hasil pemeriksaan histopatologi didapati stroma yang terdiri dari proliferasi sel bentuk bulat, inti bulat padat letak di tengah, kromatin halus, sitoplasma banyak eosinofilik (kondrosit), dan tidak dijumpai tanda-tanda keganasan, dengan kesimpulan *choristoma* kartilaginosa pada lidah. Pada evaluasi pasca operasi tidak didapatkan kekambuhan.

DAFTAR PUSTAKA

1. Semwal S, Joshi D, Gupta V, Kapoor N. Cartilaginous choristoma of tongue : A rare case report. 2019;40-2. doi:10.4103/jomfp. JOMFP.
2. Heinz MJ, Peters SM, Caruana SM, Yoon AJ. Case Report Lingual Osseous Choristoma of the Tongue Base : Unusual Presentation of a Rare Entity. 2017;2017:4-6. doi:10.1155/2017/3234086.
3. Turan Ş, Pınarbaşı MÖ, Açıklım M, Kaya E, Özüdoğru E. Lingual Osseous Choristoma. *Turkish Arch Otorhinolaryngol.* 2016;(1):86-88. doi:10.5152/tao.2016.1448.
4. Said EA. Egyptian Journal of Ear , Nose , Throat and Allied Sciences Health-related quality of life in elderly hearing aid users vs . non-users. *Egypt J Ear, Nose, Throat Allied Sci.* 2017;18(3):271-279. doi:10.1016/j.ejenta.2017.11.006.
5. Sasaki R, Yamamoto T, Okamoto T, Ando T. Cartilaginous choristoma of the tongue. *J Oral Maxillofac Surgery, Med Pathol.* 2014;1-4. doi:10.1016/j.ajoms.2014.04.003.
6. Yoshimura H, Ohba S, Imamura Y, Sano K. Osseous choristoma of the tongue : A case report with dermoscopic study. 2018;242-245. doi:10.3892/mco.2017.1523.
7. Batra R. Journal of Oral and Maxillofacial Surgery , Medicine , and Pathology The pathogenesis of oral choristomas. 2012;24:110-114. doi:10.1016/j.ajoms.2011.11.005.
8. Saniasiaya J, Mohamad I, Ghani MA, Ling HH. Lingual choristoma Lingual choristoma. *Brunei Int Med J.* 2016;6(2015):320-23.
9. Pereira GW, Pereira VD, Antonio J, Pereira DC, Maurici R. Rare disease Cartilaginous choristoma of the tongue with an immunohistochemical study. 2012:4-7. doi:10.1136/bcr-2012-006752.
10. Norris O, Mehra P. Chondroma (Cartilaginous Choristoma) of the Tongue : Report of a Case. *YJOMS.* 2012;70(3):643-646. doi:10.1016/j.joms.2011.02.052.
11. Adhikari BR, Sato J, Morikawa T, et al. Osseous choristoma of the tongue : two case reports. *J Med Case Rep.* 2016:10-13. doi:10.1186/s13256-016-0840-8.