

Kapilarni hemangiom septuma

Capillary hemangioma of the nasal septum

Marko Perković, Josip Novaković, Ana Penezić *

Sažetak

Hemangiomi su benigni vaskularni tumori koji nastaju proliferacijom kapilarnih endotelnih stanica. Lobularni kapilarni hemangiom je benigna lezija koja potječe iz vaskularnog tkiva kože, sluznice, mišića, pa i kosti. Nazalna lokalizacija je rijetka, a za ove lezije karakteristično je da brzo rastu. Mikrotrauma i trudnoća najčešći su etiopatogenetski čimbenici, te se smatra da su ti dobroćudni tumori hormonski inducirani.

Hemangiome nosne sluznice treba razlikovati od hemangioma gornje čeljusti i nosnih kostiju kod kojih su simptomi različiti, kao i način liječenja. Najčešći simptomi kod intranazalne lokalizacije su jednostrana nazalna opstrukcija, epistaksa, te rinoreja. Od ekstranazalnih simptoma najčešće su primijećeni i opisani glavobolja te facijalna bol. Ovaj slučaj prikazuje muškarca s unilateralnom opstrukcijom nosa i povremenim krvarenjem, kojem je rinoskopijom uočena lezija u desnom kavumu s polazištem na septumu. Lezija je uspješno odstranjena kirurškim putem, a postoperativna patohistološka analiza ukazala je na kapilarni hemangiom septalne sluznice.

Liječenje kapilarnih hemangioma septuma je kirurško odstranjenje tvorbe, a operativni zahvat relativno jednostavan i bezbolan, uz dobar postoperativni oporavak. Iako se smatra da se češće javljaju u trudnica, hemangiomi septuma mogu se javiti i u mlađih muškaraca, te ih je važno relativno brzo odstraniti, kako bi se isključila i maligna bolest kao uzrok unilateralnog krvarenja i nosne opstrukcije.

Ključne riječi: kapilarni hemangiom, epistaksa, nosna opstrukcija, septum

Summary

Hemangiomas are benign vascular tumors that form due to the proliferation of capillary endothelial cells. Lobular capillary hemangioma is a benign lesion that originates from a vascular tissue of the skin, mucosa, muscles, and even bones. While nasal localization is rare, fast growth is typical for these lesions. Microtrauma and pregnancy are the most common etiopathogenetic factors and it is considered that those benign tumors are hormonally induced.

Hemangioma of nasal mucosa should be distinguished from hemangioma of the upper jaw and nasal bones whose symptoms and treatment are different. With intra-nasal localization, the most common symptoms are unilateral nasal obstruction, epistaxis, and rhinorrhea. Among extra-nasal symptoms, most commonly observed and described are headaches and facial pain. This case shows a man with a unilateral nasal obstruction and occasional nose bleeding. By rhinoscopy, a lesion was observed in his right nasal cavity on the septum. The lesion was successfully removed surgically, and postoperative pathohistological analysis confirmed it was a capillary hemangioma of the mucosa of the septum.

Treatment of a capillary hemangioma of the nasal cavity is a surgical removal of the lesion, and the operation itself is relatively simple and painless, with a good postoperative course. Although it is considered to be more frequent in pregnant women, hemangioma of the septum can appear in younger men as well. It is

*Opća bolnica Karlovac, Odjel za otorinolaringologiju (Marko Perković, dr.med.); Opća bolnica Zabok i Bolnica hrvatskih veterana, Služba za kirurgiju (dr.sc. Josip Novaković, dr.med.); KBC „Sestre milosrdnice“, Klinika za otorinolaringologiju i kirurgiju glave i vrata (dr.sc. Ana Penezić, dr.med.)

Adresa za dopisivanje / Correspondence address: Marko Perković, Izidora Kršnjavoga 12 a, 47 000 Karlovac. E-mail: mperkovi245@gmail.com

Primljeno/Received 2022-08-16; Ispravljeno/Revised 2022-09-28; Prihvaćeno/Accepted 2022-10-04

important to relatively quickly remove these lesions in order to rule out malignant disease as a cause for unilateral bleeding and nasal obstruction.

Key words: capillary hemangioma, epistaxis, nasal obstruction, nasal septum

Med Jad 2022;52(3):227-230

Uvod

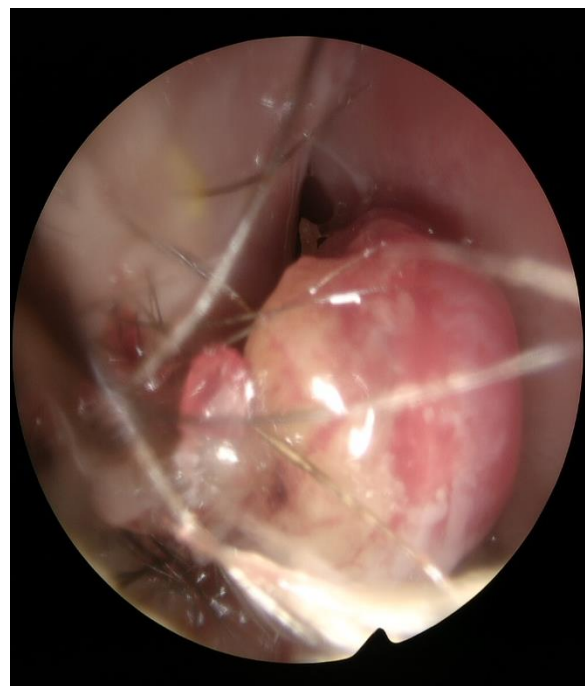
Kapilarni hemangiomi nastaju proliferacijom iz kapilarnih endotelnih stanica. Pojavnost kapilarnih hemangioma u nosnoj šupljini rijetka je u odnosu na ostale tumore nosne šupljine. Važno je razlikovati dvije vrste lezija - vaskularne tumore i malformacije, budući da su načini liječenja istih različiti. Mulliken i Glowacki su 1982. godine stvorili sustav podjele vaskularnih anomalija na vaskularne tumore, te vaskularne malformacije, što je doprinijelo lakšem načinu liječenja bolesnika. U Melbourne 2014. godine na ISSVA radionici donesena je revizija klasifikacije koja je unijela novootkrivene anomalije i gene zaslužne za te iste anomalije, te tako ujedinila napredak u znanju i liječenja svih vaskularnih anomalija. Najčešća lokalizacija hemangioma u nosnoj šupljini je septum (65%), lateralna stijenka (18%) te vestibulum (16%).¹ U području septuma najčešće mjesto pojavnosti je područje Kiesselbachovog pleksusa, gdje četiri arterije anastomoziraju, te tvore pleksus. Kiesselbachov pleksus tvore prednja etmoidalna arterija, sfenopalatinalna arterija, velika nepčana grana, septalna grana gornje labijalne arterije, te stražnja etmoidalna arterija.

Nazalni hemangiomi najčešće nastaju iz mekih tkiva, a rijetka je pojava da uzrokuju destrukciju nosnih kostiju. Hemangiomi mogu nastajati kao solitarne lezije u kostima. Oni čine 0,7% primarnih tumora kostiju, a najčešće lokalizacije su kosti lubanje, te kralježnica. Lokalizacija nosne šupljine je izuzetno rijetka, a opisano je tek nekoliko slučajeva u literaturi. Hemangiomi su najčešći tumori mekih tkiva i pojavljuju se već u dječjoj dobi. Predilekcija za ženski spol je 3:1. Patofiziološki mehanizmi koji dovode do rasta i razvoja hemangioma slabo su poznati. Razvijene su teorije o progenitorskim stanicama kao potomcima matičnih stanica koje se dalje diferenciraju u specijalizirane vrste stanice, defektima razvojnog puta stanica, zahvaćenosti placente, te poremećaju angiogeneze.^{2,3,4}

Prikaz slučaja

Muškarac (rodnom iz Egipta) u dobi od 37 godina javio se u ORL ambulantu radi unilateralne začepljenosti nosa desno, te povremenog sukrvavog

iscjetka iz nosa u zadnjih nekoliko mjeseci. Navodi kako mu je u djetinjstvu, u dobi od 6 godina učinjena polipektomija, te da od tada nije imao nikakvih tegoba s disanjem na nos. Prednjom rinoskopijom uočena je lobulirana okrugla tvorba u desnom kavumu na septumu prekrivena serosangvinoznim sekretom i krustama u areji II septuma veličine oko 1,5 cm koja se drži na uskoj peteljci (Slika 1). Endoskopijom nosa nije uočeno drugih promjena u području nosnih kavuma, niti ostiomeatalnih kompleksa. Opisana promjena ekscidirala se u lokalnoj anesteziji uz prethodnu anemizaciju sluznice u cijelosti s kauterizacijom polazišne peteljke (Slika 2). Patohistološka analiza nodularne lezije pokazala je lobularnu kapilarnu proliferaciju ispunjenu krvlju, te obloženu endotelnim stanicama. Uočen je okolni upalni infiltrat koji se sastoji od limfocita, eozinofila, plazma stanica i neutrofila (Slika 3). Imunohistokemijski, tkivo je bilo pozitivno na CD31 i CD34 markere endotelnih stanica koji ukazuju na jaki angiogenetski potencijal. Lezija je dijagnosticirana kao kapilarni hemangiom septalne sluznice. U postoperativnom praćenju nakon dva mjeseca nisu uočeni znakovi recidiva bolesti, niti je bolesnik imao epistakse u navedenom razdoblju.

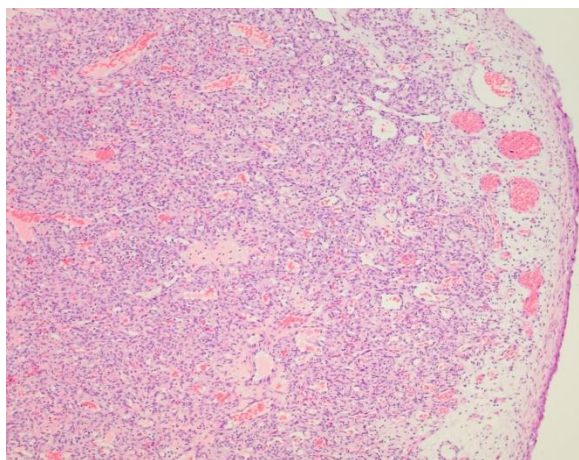


Slika 1. Prikaz hemangioma endoskopskim putem.
Figure 1 Endoscopic presentation of hemangiomias



Slika 2. Prikaz u potpunosti ekscidiranog hemangioma.

Figure 2 Illustration of a completely excised hemangioma.



Slika 3. Histološko bojenje preparata, obojan hematoksilin-eozinom, povećanja 100×, prikazana je nodularna lezija s lobularnom kapilarnom proliferacijom obložena endotelnim stanicama, te ispunjena krvlju, te okolni upalni infiltrat koji se sastoji od limfocita, eozinofila, plazma stanica i neutrofila.

Figure 3 Histological staining of the preparation, stained with hematoxylin-eosin, magnification 100×, shows a nodular lesion with lobular capillary proliferation lined with endothelial cells and filled with blood and the surrounding inflammatory infiltrate consisting of lymphocytes, eosinophils, plasma cells and neutrophils.

Rasprava

Kožni hemangiomi puno su češći nego hemangiomi sluznice. Hemangiome možemo histološki podijeliti na dvije glavne vrste prema dominaciji krvnih žila mikroskopski. Lobularni kapilarni hemangiomi sastoje se od manjih krvnih prostora obloženih endotelom, dok se kavernozi hemangiomi sastoje od većih vaskularnih prostora obloženih endotelom.

Lobularni kapilarni hemangiomi češće su prisutni kod djece, a kavernozi se susreću kod bolesnika starije dobi. Lobularni se po mjestu lokalizacije pojavljuju na sluznici nosnog septuma, te donjoj nosnoj školjci, za razliku od kavernozi koji se pojavljuju u maksilarnom sinusu, te srednjoj nosnoj školjci. Točan razlog ovakve pojavnosti nije poznat.^{5,6}

Lobularne kapilarne hemangiome prvi su opisali Poncet i Dor 1897. godine, te su tada smatrali da su lezije posljedice gljivične infekcije, pa od tuda i naziv piogeni granulom.⁷ Makroskopski se prikazuju kao uzdignuta ili polipoidna masa, sa ili bez površnih ulceracija.

Smatra se da lokalna trauma, hormonski utjecaji, virusni onkogeni, arteriovenske malformacije, te pojačana angiogeneza imaju uloge u patogenetskom mehanizmu nastanka hemangioma. Pojačana je pojavnost hemangioma u trudnoći i kod bolesnica koje uzimaju oralne kontracepcijske pilule, što govori u prilog tome da su hormonski inducirani pod utjecajem estrogena i progesterona. Najčešća pojavnost je nakon prvog tromjesečja trudnoće kada pokazuju ubrzani rast, a nakon poroda se povlače. Yuan i sur. opisali su odnos između hemangioma i angiogenetskog čimbenika u trudnoći. Prema istraživanju, ženski spolni hormoni pojačavaju ekspresiju angiogenih čimbenika, kao što su osnovni čimbenik rasta fibroblasta (FGF) i čimbenik rasta vaskularnog endotela (VEGF).⁸ Također, uz pojačanu ekspresiju čimbenika, suprimiraju apoptozu stanica smanjujući ekspresiju čimbenika nekroze tkiva TNF-alfa.⁹ Točan mehanizam u patogenezi virusnih onkogeni nije do kraja razjašnjen, ali studija Kirdara i sur. dokazala je kod bolesnika povezanost s humanim papiloma virusom.¹⁰

Radiološke pretrage poput kompjuterizirane tomografije paranazalnih sinusa mogu isključiti koštane destrukcije ili moguće maligne transformacije. Diferencijalno-dijagnostički na MSCT-u treba isključiti nazalni angiofibrom. Juvenilni nazofaringealni angiofibrom diferencijalno-dijagnostički dolazi u obzir samo ako je bolesnik adolescent.¹¹

Postoje dva načina pristupa liječenju kapilarnih hemangioma – konzervativni, te kirurški način liječenja. Konzervativni način liječenja uključuje intranazalne kortikosteroide, propranolol, te primjenu lasera. Navedenim načinom kod hemangioma izazivamo involuciju u rastu promjene.¹² Kirurški način liječenja, te opseg samoga liječenja bitno je prilagoditi veličini tumora. Totalna ekscizija indicirana je kod manjih hemangioma dok je kod većih hemangioma indicirana subtotalna ekscizija s brigom o očuvanju nosne arhitekture. Kod većih hemangioma moguća je embolizacija s ciljem smanjenja tumora i rizika od većeg krvarenja tijekom ekscizije. Najbolje je eksciziju učiniti endoskopski vođenim tehnikama sinusne kirurgije koje su pokazale dobre rezultate. Takva tehnika omogućuje operateru dobru vizualizaciju samog hemangioma, kao i okolne anatomije. Tehnika je sigurna i učinkovita zamjena za operativni zahvat otvorenog pristupa. Zbog nepotpune ekscizije stopa recidiva je oko 16%. Maligne transformacije u literaturi nisu zabilježene.¹³ Najčešće nisu potrebne preoperativne biopsije, već je dovoljno učiniti ekscizijsku biopsiju, što smo i napravili kod našeg bolesnika.

Literatura

- Hoffmann DF, Israel J. Intraosseous frontal hemangioma. *Head Neck* 1990;12:160-3.
- Waner M, Buckmiller L, Suen JY. Surgical management of hemangiomas of the head and neck. *Oper Tech Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;13:77-84.
- Buckmiller LM, Richter GT, Suen JY. Diagnosis and management of hemangiomas and vascular malformations of the head and neck. *Oral Dis* 2010;16:405–18.
- Bruckner AL, Frieden IJ. Infantile hemangiomas. *J Am Acad Dermatol* 2006;55:671-82.
- Iwata N, Hattori K, Nakagawa T, Tsujimura T. Hemangioma of the nasal cavity: a clinicopathologic study. *Auris Nasus Larynx* 2002;29:335-339.
- Song CE, Cho JH, Kim SY, Kim SW, Kim BG, Kang JM. Endoscopic resection of haemangimas in the sinonasal cavity. *J Laryngol Otol* 2009;123: 868-72.
- Poncet A, Dor L. Botyromyose. *Humaine Rev Chir (Paris)* 1897;18:996.
- Yuan K, Lin MT. The roles of vascular endothelial growth factor and angiopoietin-2 in the regression of pregnancy pyogenic granuloma. *Oral Dis* 2004;10:179-85.
- Yuan K, Wing L-Y C, Lin MT. Pathogenetic roles of angiogenic factors in pyogenic granulomas in pregnancy are modulated by female sex hormones. *J Periodontol.* 2002;73:701–708.
- Kirdar S, Basak S, Odabasi O, Doger FK, Erpek G. Humanpapillomavirus in rare unilateral benign intranasal tumours. *Rhinology* 2009;47:349-353.
- Spielmann PM, Adamson R, Cheng K, Sanderson RJ. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: spontaneous resolution. *Ear Nose Throat J* 2008;87:521–3
- Simic R, Vlahovic A, Subarevic V. Treatment of nasal hemangiomas. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2009;73:1402–6.
- Lee JH. Spontaneous regression of a large nasal hemangioma in a 55-year-old male. *Ear Nose Throat J* 2022;101:NP235-NP237.