

Angiolejomiom vestibuluma nosa – prikaz bolesnika

Angioleiomyoma of the nasal vestibule – case report

Filip Miletić¹, Vedran Blažina²

¹Opća bolnica Karlovac, Odjel za otorinolaringologiju

²Opća bolnica Karlovac, Služba za kirurgiju

Sažetak

Angiolejomiomom su rijetki dobroćudni tumori mezenhimalnog podrijetla. U radu je prikazan 52-godišnji bolesnik sa simptomima jednostrane nosne opstrukcije u trajanju od šest mjeseci. Učinjenom kliničko-dijagnostičkom obradom utvrđen je ekspanzivni proces vestibuluma nosa s ishodištem u području gornjeg dijela vestibuluma. Učinjena je transnazalna ekscizija. Obzirom na to da su angiolejomiomom izuzetno rijetki tumori sinonazalne lokalizacije, potrebno ih je uključiti u diferencijalnu dijagnozu simptoma jednostrane nosne opstrukcije.

Ključne riječi: dobroćudni tumori, nosna šupljina, angiolejomiom

Summary

Angioleiomyoma are rare benign tumors of mesenchymal origin. This paper presents a 52-year-old patient with symptoms of unilateral nasal obstruction for six months. A clinical-diagnostic examination determined an expansive process of the vestibule of the nose with its origin in the area of the roof part of the vestibule. Transnasal excision is performed. Since angioleomyomas are extremely rare tumors of sinonasal localization, they should be included in the differential diagnosis of symptoms of unilateral nasal obstruction.

Key words: benign tumors, nasal cavity, angioleiomyoma

Uvod

Angiolejomiomom su rijetki dobroćudni tumori mezenhimalnog podrijetla.¹ Nastaju od glatkih mišićnih stanica u stijenkama krvnih žila, žlijezdama znojnicama i piloerektornim mišićima. Najčešće su lokalizirani u području maternice, kože i probavnog sustava.^{2,3} Angiolejomiomom u području glave i vrata čine 8% od ukupnog broja angiolejomiomom, a manje od 1% angiolejomiomom pojavljuje se u području nosne šupljine, što ih čini izuzetno rijetkima.¹

Prikaz bolesnika

Muškarac u dobi od 52 godine javio se u

otorinolaringološku ambulantu zbog simptoma jednostrane opstrukcije disanja na desnu nosnicu unatrag šest mjeseci. Bolesnik se nije žalio na bolove niti je primijetio krvarenje iz nosa. Povijest bolesti uključivala je podatke o mentalnoj retardaciji, epilepsiji, arterijskoj hipertenziji te kolecistektomiji zbog kroničnog kalkuloznog kolecistitisa. Pregledom je utvrđena ekspanzivna, dobro ograničena, ružičasta tvorba naglašanih površinskih žila koja u potpunosti opstruira desni nosni kavum, a čije je ishodište bilo u području gornjeg dijela vestibuluma, na užoj peteljci. (Slika 1.)

S obzirom na navedene karakteristike tumora, u općoj anesteziji je, po infiltraciji lokalnog anestetika

Autor za dopisivanje/Author for correspondence: Filip Miletić, dr.med., Opća bolnica Karlovac, Odjel za otorinolaringologiju, Andrije Štampara 3, 47 000 Karlovac E-mail: mileticfilip@gmail.com

Primljeno/Received 2024-11-18; Ispravljeno/Revised 2025-02-24; Prihvaćeno/Accepted 2025-02-25

i vazokonstriktora, učinjena transnazalna ekscizija tumora metodom elektrokauterizacije. (Slika 2.)



Slika 1. Angiolejomiom vestibuluma nosa
Figure 1 Angioleiomyoma of the nasal vestibule

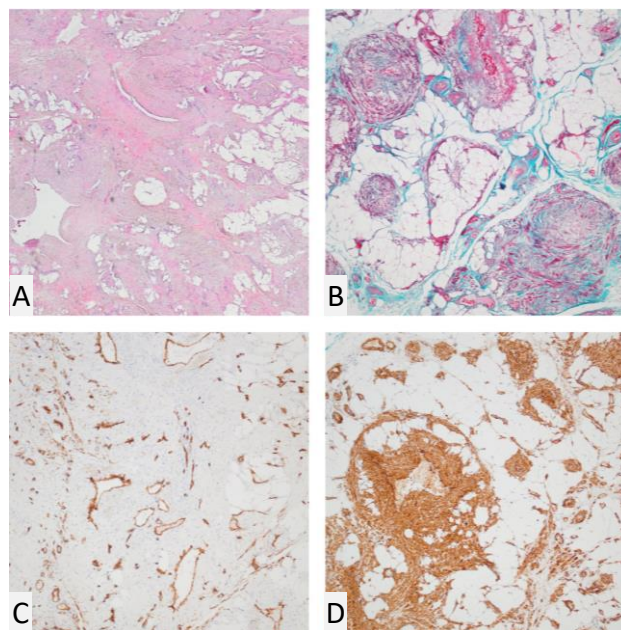


Slika 2. Makroskopski prikaz tumora nakon transnazalne resekcije
Figure 2 Macroscopic view of the tumor after transnasal resection

Postavljena je obostrana prednja tamponada nosnih kavuma jodoform gazom. Rani postoperativni tijek i daljnji boravak na odjelu protekli su bez tegoba, te je bolesnik narednoga dana otpušten na kućno liječenje. Petog postoperativnog dana provedena je detamponada oba nosna kavuma. Postoperativni nalaz bio je uredan, te je preporučena daljnja lavaža oba nosna kavuma fiziološkom otopinom.

Patohistološka analiza verificirala je angiolejomiom, oštro ograničenu tvorbu promjera 17 mm građenu od dijelom ovalnih, dijelom pukotinastih vaskularnih prostora tipa vena s mišićnom stijenkom građenom od snopova jednoličnih vretenastih stanica uloženi u hijalinizirano vezivo, koje se šire i stapaju s intervaskularnim prostorima u kojem se nalaze i manje nakupine zrelih masnih stanica. Mitoza, nekroze i atipije nije bilo prisutno. Na površini se

nalazio blago zadebljali epidermis. (Slika 3).



Slika 3. Patohistološki preparat angiolejomiona: A) Mekotkivna tvorba građena od vaskularnih prostora tipa vena s mišićnom stijenkom, stroma dijelom hijalina sa zrelih masnih stanicama. (bojenje H&E, povećanje × 40); B) Histokemijsko bojenje Mallory koje prikazuje zeleno hijalinizirano vezivo strome, te crveno mišićni sloj žila (povećanje × 100); C) Imunohistokemijsko bojenje CD34, smeđa reakcija endotela vaskularnih prostora (povećanje × 100); D) Imunohistokemijsko bojenje SMA, smeđa reakcija mišićne stijenke žila (povećanje × 100).

Figure 3 Pathohistological preparation of angioleiomyoma A) A soft tissue formation made up of vascular spaces such as veins with a muscle wall, stroma with a part of hyaline with mature fat cells. (H&E staining, magnification × 40); B) Histochemical staining of Mallory showing green hyalinated stromal connective tissue and red muscle layer of vessels (magnification × 100); C) Immunohistochemical staining CD34, brown reaction of the endothelium of vascular spaces (magnification × 100); D) Immunohistochemical staining of SMA, brown reaction of the muscle wall of the vessels (magnification × 100).

Narednih šest mjeseci provodili smo redovite ambulantne kontrole bolesnika, te nismo utvrdili recidiv ranije odstranjenog tumora. Potrebne su daljnje redovite kontrole jer angiolejomioni sinonazalne lokalizacije pokazuju mogućnost recidiva u 1,15% slučajeva i uglavnom su posljedica nepotpune ekscizije.⁴

Rasprava

Prvi angiolejomiom opisao je Stout 1937. godine.² Sinonazalni angiolejomiom prvi je opisao Maesaka 1966. godine.³ Riječ je o rijetkim, benignim tumorima koji potječu od glatkih mišićnih stanica

koje mogu biti aberantne ili diferencirane, u stijenkama krvnih žila, oko žlijezda znojnica i piloerektornih mišića.^{5,6,7} Najčešće lokalizacije su maternica (95%), koža (3%), probavni sustav (1,5%), a u području nosnih i paranazalnih šupljina javljaju se u manje od 1% slučajeva i to češće u žena, nego u muškaraca^{1,4,7}. Neki radovi ukazuju na hormonske utjecaje progesterona i infekcije Epstein Barr virusom kao moguće mehanizme nastanka navedenih tumora.^{1,7} Od ostalih etiopatogenetskih mehanizama navode se traume i arterijsko-venske malformacije.² U području nosnih i paranazalnih šupljina najčešće lokalizacije jesu redom: septum, donja nosna školjka, vestibulum, baza nosnog kavuma, srednja nosna školjka i etmoidni sinus, lateralni zid nosa, maksilarni sinus, nazolakrimalni duktus, te gornja nosna školjka⁸. Nije utvrđena dominantna strana pojavnosti tumora.⁴ Postoje tri histološka podtipa: solidni, venski i kavernozi.^{2,4} Solidni su češći u žena, u oko 70% slučajeva i bolni su. Venske i kavernoze podtipove češće susrećemo kod muškaraca (a u 30% slučajeva) i manje su bolni. Potonji su češći u području glave i vrata.² Diferencijalna dijagnoza uključuje angiomiolipome koji imaju veći udio adipocita (20-30%), lejomiosarkome koji su zloćudni, miopericitome, hemangiome, angiofibrome i angiofibromiome.² Najčešći kirurški pristup ablaciji tumora u nosu je transnazalna endoskopska ekscizija, a kod većih tumora ili nepovoljnijih lokalizacija koriste se transpalatalni pristup, Caldwell Luc, lateralna rinotomija, vanjska etmoidotomija, medijalna maksilektomija, te kraniofacijalna resekcija.⁸ Prognoza je odlična, a do danas nije objavljen slučaj maligne transformacije angiolejomiona. U rijetkim slučajevima, ukoliko se tumor ne odstrani u cijelosti, može se javiti recidiv.^{4,6}

Pregledom literature medicinske baze podataka Pub Med utvrdili smo 66 članaka o navedenoj temi. Koristili smo se ključnim riječima: benign tumors, nasal cavity, angioleiomyoma. Od toga broja, devet članaka je navodilo lokalizaciju u području vestibuluma nosa.⁴ Iako su angiolejomioni sinonazalne lokalizacije češći kod žena, oni lokalizirani u vestibulumu češći su kod muškaraca.⁴ Raspon godina prikazanih bolesnika u literaturi bio je između 41 i 70 godina.⁴ U navedenim radovima veličine ekscidiranih angiolejomiona varirale su između 6 i 20 mm.⁴ Većina bolesnika prezentirala se rastućom masom i opstrukcijom disanja, dok je u svega nekoliko bolesnika opisana epistaksa, bol, te otok gornje usne. U usporedbi s prikazanim bolesnicima u literaturi vidljivo je da dob, veličina tumora i simptomi kod prikazanog bolesnika odgovaraju podacima objavljenim u radovima.⁴ Budući radovi o sinonazalnim angiolejomionima

trebali bi obuhvatiti detaljnije prikupljanje podataka o epidemiološkim, etiološkim i nasljednim čimbenicima kod svakog pojedinog bolesnika.^{4,8,9}

Literatura

1. Marioni G, Marchese-Ragona R, Fernandez S, Bruzon J, Marino F, Staffieri A. Progesterone Receptor Expression in Angioleiomyoma of the Nasal Cavity. *Acta Otolaryngol* 2002; 122: 408–412.
2. Varghese L, Mathew S, Vijayakumar K. Nasal Angioleiomyoma: An Unusual Cause of Epistaxis. *Oman Med J* 2015;30:303-5.
3. Navarro Júnior CR, Fonseca AS, Mattos JR, Andrade NA. Angioleiomyoma of the nasal septum. *Braz J Otorhinolaryngol* 2010;76:675.
4. Velletrani G, Maurizi R, De Padova A, Di Girolamo S. Angioleiomyoma of the Sinonasal Tract: A Systematic Review of an Uncommon Clinicopathological Entity. *Int Arch Otorhinolaryngol* 2023;28:e350-e366.
5. Aphthorp C, Sharma S, Barrak Aldeerawi H. Uncommonly sited rare tumour causing nasal obstruction. *BMJ Case Rep* 2020;13:e233486.
6. Arora R, Mahindru S, Kathuria K. Sinonasal Angioleiomyoma: A Rare Entity. *Biomed Hub* 2020;5:661-666.
7. Arruda MM, Monteiro DY, Fernandes AM, et al. Angioleiomyoma of the nasal cavity. *Int Arch Otorhinolaryngol* 2014;18:409-11.
8. Ho CH, Lin HC, Chou CC, Huang HY. Sinonasal Angioleiomyoma. *Ear Nose Throat J* 2020;99:NP109-NP110.
9. Sawada Y. Angioleiomyoma of the nasal cavity. *J Oral Maxillofac Surg* 1990;48:1100-1.

