

Bukkal mukoza yerleşimli lenfanjiyoma sirkumskriptumu bir çocuk

A case of child with lymphangioma circumscriptum on buccal mucosa

Emine Tuğba Alataş*, Hilal Semra Çelebi*, Gürsoy Doğan*, Asude Kara**

*Muğla Sıtkı Koçman Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Deri ve Zührevi Hastalıklar ABD, Muğla.

**Muğla Sıtkı Koçman Üniversitesi, Eğitim Ve Araştırma Hastanesi, Deri ve Zührevi Hastalıklar Kliniği, Muğla.

Özet

Lenfanjiyomalar deri, subkutan doku ve mukozaları etkileyen hamartamatöz konjenital malformasyonlardır. Tüm vasküler tümörlerin %4'ünü oluşturur. Genellikle doğumda ya da erken çocukluk döneminde ortaya çıkmasına rağmen akkiz formları da bulunmaktadır. Tipik olarak 2 ile 4 mm çapları arasında berrak, pembe, kırmızı veya siyah renkli vezikül kümecikleri şeklinde ortaya çıkar. Lezyonlar ekstremitelerin proksimal kısımları, karın, uyluk, kalça ve dilde yerleşir; nadiren de bukkal mukozada, vulva, perine ve skrotumda görülebilmektedir. Tedavide cerrahi eksizyon, koterizasyon, kriyoterapi ve lazer uygulanır. Burada, bukkal mukozaya nadir yerleşen lenfanjiyoma sirkumskriptumu olan on üç yaşında kız olgu sunulmaktadır.

Pam Tıp Derg 2016;9(2):145-147

Anahtar sözcükler: Bukkal mukoza, çocuk, kriyoterapi, lenfanjiyoma sirkumskriptum.

Abstract

Lymphangiomas are hamartomatous congenital malformations, affect skin, subcutaneous tissues and mucosa. It constitutes 4% of all vascular tumors. Although it usually presents at birth or in early childhood, it has also acquired forms. Typically, it occurs as 2 to 4 mm diameter clear, pink, red or black colored and clustered vesicles. Lesions settle proximal parts of the extremities, abdomen, thighs, buttocks and tongue; rarely it can be seen in buccal mucosa, vulva, perineum and scrotum. Surgical excision, cauterization, cryotherapy or laser is used in the treatment. Herein, a rare case of a thirteen-year-old girl who has lymphangioma circumscriptum settled in buccal mucosa is offered.

Pam Med J 2016;9(2):145-147

Key words: Buccal mucosa, children, cryotherapy, lymphangioma circumscriptum.

Giriş

Lenfanjiyomalar vasküler malformasyonlardır ve lenfatik damarların benign tümörleri olarak bilinirler. En sık baş-boyun bölgesinde yerleşirken bukkal mukoza lezyonları oldukça nadirdir. Klinik olarak farklı boyutlarda, berrak sıvı ve kan karışımı ile dolu, ince duvarlı veziküller olarak görülür. Kendiliğinden gerilemezler. Histopatolojisinde endotel ile döşeli, dilate lenfatik damarlar görülür. Sıklıkla bir gelişim defekti olarak karşımıza çıkan lenfanjiyomalar doğumda ya da erken çocukluk döneminde görülür [1]. Olgumuz bukkal mukozada yerleşen

beşinci lenfanjiyoma sirkumskriptumlu vaka olduğundan sunmak istedik.

Olgu Sunumu

On üç yaşındaki kız hasta, polikliniğimize bukkal mukozada ağrısız, yüzeyden kabarık lezyon ile başvurdu. Lezyonun altı yıl önce oluşmaya başladığını ve giderek büyüdüğünü belirten hastanın özgeçmişi ve soygeçmişinde özellik saptanmadı. Dermatolojik muayenesinde, sol bukkal mukozada 2,5x2 cm çapında, düzgün sınırlı, palpasyonla hassas olmayan, verrüköz plak izlendi (Resim 1). Hastanın baş-boyun muayenesi normaldi, lenfadenopati saptanmadı.

Emine Tuğba Alataş

Yazışma Adresi: Muğla Sıtkı Koçman Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Deri ve Zührevi Hastalıklar ABD, Muğla.
e-mail: dretuba_oz@hotmail.com

Gönderilme tarihi: 07.10.2015

Kabul tarihi: 17.11.2015



Resim 1. Sol yanak mukozada pembe renkli grube veziküller (Kriyoterapi öncesi)

Çekilen maksillofasiyal magnetik rezonans görüntüleme (MRG) sonucunda sol yanak bölgesinde submukozal alanda yerleşim gösteren, 24x11 boyutlarında kitle lezyonu izlendi. Lezyonun komşu dokuya invazyon yapmadığı, benign karakterde olduğu gözlemlendi. Bukkal mukozadan alınan parçanın histopatolojik incelenmesinde epitelde fokal diskeratoz, akantoz ve intraepidermal vezikül izlendi. Stromadaysa lenfatiklerde dilatasyon ve hafif şiddette kronik inflamasyon görülerek bulgular lenfanjiyoma sirkumsikriptum ile uyumlu olarak değerlendirildi. Tedavide lezyona çift donma-erime siklusu şeklinde ve dört haftalık aralıklarla kriyoterapi uygulandı. Hastanın takibinde lenfanjiyomada belirgin regresyon tespit edildi (Resim 2).



Resim 2. Kriyoterapi sonrası görünüm.

Tartışma

Lenfanjiyoma ya da lenfanjiektazi dilate kutanöz lenf damarlarına denir. Lenfanjiyomada patogenezi önceden normal olan derin lenfatik

damar yapılarında hasara bağlı olarak geri basınç ile lenf birikimi ve yüzeysel lenfatik kanalların dilatasyonudur. Çoğu gerçek neoplazi olmayıp, gelişimsel anomali ya da hasara bağlı lenfatik sistem malformasyonlarıdır [1]. %75'i baş ve boyun bölgesine yerleşmiştir. %60'ı doğumda bulunmakta, %90'ı 2 yaşına kadar gelişmektedir [2]. Bunun yanında akkiz lenfanjiyoma denen formu da olup önceden normal olan lenfatik damarlarda oluşan hasara sekonder olarak gelişir [1].

Klinik olarak deride ve mukozada herhangi bir yerde görülebilen, yüzeyi üzerinde saçılmış şeffaf ya da hemorajik veziküllerden oluşan bir plak olabileceği gibi deri renginde papül ve nodüller şeklinde de olabilir [1,2]. Lenfanjiektaziler çoğunlukla altta yatan patoloji ile uyumlu olarak gruplar halinde yerleşmiştir. Lezyonlarda bazen spontan olarak ya da travma etkisiyle sütsü beyaz bir akıntı olur. Bu durum özellikle lenfödemle eşlik ettiği vakalarda daha sık izlenir. En sık etkilenen alanlar, baş, boyun, proksimal ekstremiteler, kalçalar ve gövdedir. Mukozal tutulum nadir olmakla birlikte görülebilir. Oral lenfanjiyomalar daha çok dilin 2/3 ön kısmında yerleşmektedir [3]. Nadiren bukkal mukozada yerleşir [4].

Bildiğimiz kadarıyla olgumuz bukkal mukozada yerleşen altıncı olgudur. Literatürde operasyon ve radyoterapiye sekonder olarak bukkal mukozada gelişen vakalar bildirilmiştir [4-8]. Ayrıca vakamız diğer olgulardan farklı olarak bukkal mukozada yerleşen en genç yaştaki olgudur. Literatürdeki olgular ve özellikleri Tablo 1'de belirtilmiştir (Tablo 1) [4-8].

Histopatolojik olarak, endotelle çevrili lenf sıvısı veya kan içeren dilate lenfatik kanallar izlenmektedir [2]. Biz de olgumuzda stromada lenfatiklerde dilatasyon saptadık.

Tanı, genellikle tipik görünümüyle klinik olarak konmaktadır. Bununla birlikte atipik lokalizasyonda ve görünümdeki lezyonlarda tanının histopatolojik olarak doğrulanması gerekebilir. Son zamanlarda lezyonların derinliğini belirlemek için MRG ve doppler ultrasonografi önem kazanmıştır [9]. Olgumuzda MRG sonucunda komşu dokuya invazyon yapmadığı görüldü. Deri lezyonlarını molluskum contagiozum, kondiloma akuminata ve verrukalardan klinik olarak ayırt etmek zor olabilir. Bu da yanlış tedavilerle lezyonların

Tablo 1. Literatürdeki bukkal mukoza yerleşimli lenfanjiyoma sirkumskriptumlu olgular.

Vaka No	Yaş	Başlangıç zamanı	Lokalizasyon	Kaynak No
1	29	Çocuklukta	Sol bukkal mukoza	4
2	21	Belirtilmemiş	Sağ bukkal mukoza	8
3	17	Çene cerrahisinden 3 ay sonra	Bukkal mukoza	6
4	Yetişkin	Belirtilmemiş	Sağ bukkal mukoza	7
5	61	Radyoterapiden 2 yıl sonra	Sol bukkal mukoza	5
6	13	6 yıl önce	Sol bukkal mukoza	olgumuz

daha da komplike olmasına sebep olmaktadır [10,11].

Tedavide cerrahi eksizyon, kriyoterapi, elektrokoter, skleroterapi, radyofrekans ablyasyon, karbondioksit ve Argon lazer kullanılabilir [1,12]. Ancak nüks sıktır. Jappe ve arkadaşlarının [13] yaptıkları çalışmada tekrarlayan cerrahi sonrası keloid gelişimi mevcut olup yakın zamandaki çalışmalarda karbondioksit lazerin tedavide etkili olduğu gözlemlenmiştir [14]. Biz de olgumuzda kriyoterapi tedavisinin 3. seansında lezyonlarda belirgin düzelme gözlemledik.

Sonuç olarak bukkal mukozada veziküler lezyonlarla gelen hastalarda ayırıcı tanıda lenfanjiyoma sirkumskriptumun akılda tutulması gerektiği, biyopsi ve MRG ile tanının desteklenebileceği, tedavide kriyoterapinin uygulanabileceği akılda tutulmalıdır.

Bu olgu 5. Dermatoimmünoloji ve Allerji Güz Okulunda poster olarak sunulmuştur (17-21 Eylül 2014, Bodrum, Türkiye).

Çıkar İlişkisi: Yazarlar çıkar ilişkisi olmadığını beyan eder.

Kaynaklar

1. Kaçar SD, Özüğüz P, Ulu Ş, Karaca Ş, Tokyol Ç. Oral mukozada kronik travma sonrası oluşan lenfanjiom: olgu sunumu. *Turk J Dermatol* 2013;7:158-160.
2. Avcı O. Dudak ve ağız boşluğu hastalıkları. In: Tüzün Y, Gürer MA, Serdaroğlu S, Oğuz O, Aksungur VL, ed. *Dermatoloji*. 3. Baskı. İstanbul:Nobel Tıp Kitabevleri, 2008;1377-1444.
3. Ganesh C, Sangeetha GS, Narayanan V, Umamaheswari TN. Lymphangioma circumscriptum in an adult: an unusual oral presentation. *J Clin Imaging Sci* 2013;3:44.
4. Rifaioğlu EN, Şen BB, Ekiz Ö, Doğan EA, Doğramacı AÇ. Yanak mukozasına yerleşmiş lenfanjiyoma sirkumskriptum. *Türkiye Klinikleri J Case Rep* 2013;21:138-140.
5. Poh CF, Priddy RW. Acquired oral lymphangioma circumscriptum mimicking verrucous carcinoma. *Oral Oncology Extra* 2005;41:277-280.
6. Yoo WM, Oh SH, Rah DK, Park BY. Lymphangioma circumscriptum on buccal mucosa: a case report. *J Korean Soc Plast Reconstr Surg* 1998;25:119-123.
7. Singh O, Nehru V, Mehta S, Radotra BD, Mann SBS. Lymphangioma circumscriptum of cheek: a case report. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 1993;45:41-42.
8. Bozkaya S, Uğar D, Karaca I, et al. The treatment of lymphangioma in the buccal mucosa by radiofrequency ablation: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2006;102:e28-31.
9. James WD, Berger TG, Elston DM. *Andrew's diseases of the skin clinical dermatology*. 10th Ed. Canada: Elsevier, 2006.
10. North J, White K, White C, Solomon A. Acquired verrucous gluteal lymphangioma in the setting of Crohn's disease. *J Am Acad Dermatol* 2011;5:e90-91.
11. Mu XC, Tran TA, Dupree M, Carlson JA. Acquired vulvar lymphangioma mimicking genital warts. A case report and review of the literature. *J Cutan Pathol* 1999;26:150-154.
12. Bikowski JB, Dumont AM. Lymphangioma circumscriptum: treatment with hypertonic saline sclerotherapy. *J Am Acad Dermatol* 2005;53:442-444.
13. Jappe U, Zimmermann T, Kahle B, Petzoldt D. Lymphangioma circumscriptum of the vulva following surgical and radiological therapy of cervical cancer. *Sex Transm Dis* 2002;29:533-535.
14. Huilgol SC, Neill S, Barlow RJ. CO(2) laser therapy of vulval lymphangiectasia and lymphangioma circumscriptum. *Dermatol Surg* 2002;28:575-577.