

SERVİKS KANSERİ SONRASI GELİŞEN VULVAR LENFANJİOMA SİRKUMSKRİPTUM; OLGU SUNUMU

VULVAR LYMPHANGIOMA CIRCUMSCRIPTUM AFTER CERVICAL CANCER, A CASE REPORT

Dr. Cem Yalçınkaya¹, Dr. Gonca Çoban¹, Dr. Filiz Aka Bolat²,
Dr. Harun Çöloğlu³, Dr. Hüsnü Çelik¹

ÖZET

Vulvar lenfanjioma sirkumskriptum, vulva lenfatik kanal sisteminin nadir rastlanan benign bir hastalığıdır. Genellikle konjenital olmakla birlikte nadiren erişkinlerde de kazanılmış olarak ortaya çıkabilir. Bu çalışmada skuamoz hücreli kanser tedavisinden 9 yıl sonra ortaya çıkan vulvar lenfanjioma sirkumskriptum vakası ve tedavisi sunulmuş, literatür ışığında tartışılmıştır.

Anahtar Kelimeler: Vulvar lenfanjioma sirkumskriptum, kazanılmış, radikal vulvektomi, servikal kanser

ABSTRACT

Vulvar lymphangioma circumscriptum is a rare disease of the vulvar lymphatic canal system. Although it is usually congenital, acquired disease may occur as rarely in adults. In this study, it has been reported and discussed a case of vulvar lymphangioma circumscriptum occurred after the treatment of cervix squamous cell cancer in light of the literature.

Key Words: Vulvar lymphangioma circumscriptum, acquired, radical vulvectomy, cervical cancer

Geliş Tarihi: 04/02/2014

Kabul Tarihi: 25/08/2014

¹Başkent Üniversitesi Adana Araştırma ve Uygulama Hastanesi, Kadın Doğum Bölümü, Adana, Türkiye

²Başkent Üniversitesi Adana Araştırma ve Uygulama Hastanesi, Patoloji Bölümü, Adana, Türkiye

³Başkent Üniversitesi Adana Araştırma ve Uygulama Hastanesi, Plastik ve Rekonstrüktif Cerrahi Bölümü, Adana, Türkiye

İletişim: Dr. Cem Yalçınkaya

Başkent Üniversitesi Adana Araştırma ve Uygulama Hastanesi, Kadın Doğum Bölümü, Adana, Türkiye

Tel: 0 322 327 27 27

E-posta: yalcinkayacem@hotmail.com

GİRİŞ

Lenfanjioma sirkumskriptum, lenf sisteminin benign bir hastalığıdır ve konjenital ya da kazanılmış olarak görülebilmektedir. Vücudun herhangi bir yerinde görülebilmekte ve düzensiz gruplar halinde, vezikül ya da psödovezikül plaklarından oluşmaktadır. Kazanılmış vulvar lenfanjioma sirkumskriptum nadir bir durumdur ve sıklıkla jinekolojik kanser nedeniyle radikal cerrahi ve adjuvan radyoterapi alan hastalarda ortaya çıkabilmektedir (2,6). Görünümü ile HPV'ye bağlı kondiloma aküminatayı ya da vulvanın verrüköz kanserlerini taklit edebilmektedir (7,9).

Bu çalışmada kazanılmış Lenfanjioma sirkumskriptum olgusunun sunumu amaçlanmıştır.

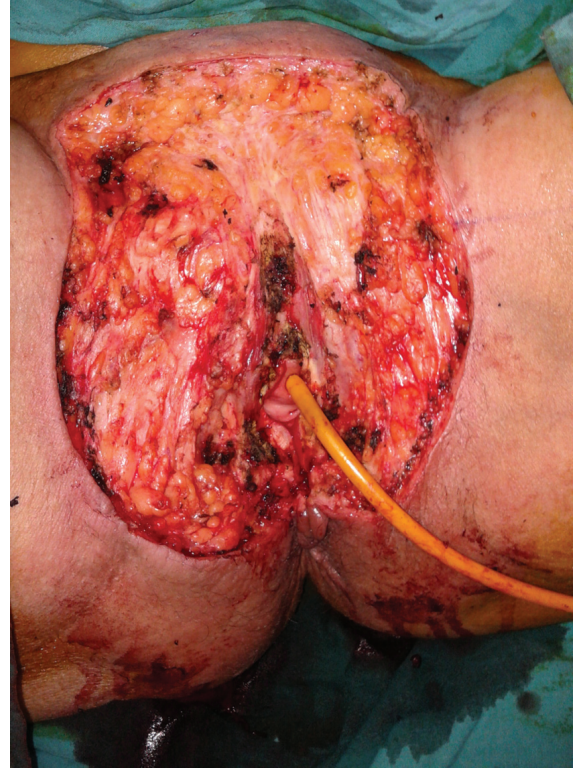
OLGU

71 yaşındaki kadın hasta, jinekolojik onkoloji departmanına, bir yıldır devam eden ve gittikçe çoğalan vulvar papüloveziküler lezyonlar nedeniyle başvurdu. Vulvar kaşıntı, hassasiyet, işeme güçlüğü şikayetleri mevcuttu. Hikayesinden, 9 yıl önce serviks skuamoz hücreli kanser nedeniyle radikal histerektomi geçirdiği ve postoperatif adjuvan brakiterapi almış olduğu, bir yıl önce her iki labiadan yüzeysel eksizyon yapıldığı öğrenildi. Yüzeysel eksizyondan yaklaşık 4-5 ay sonra lezyonların tekrarladığı ve giderek yaygınlaştığı öğrenildi.

Fizik muayenede, tüm vulvayı kaplayan, labia majora ve minoraları tamamen örten, eksternal üretral orifisi kısmen kapatan, gri renkte, hiperkeratotik vezikülopapiller lezyonlar mevcuttu (Resim 1). Lezyonlar bir kaç



Resim 1 • Vulvar lenfanjioma sirkumskriptum.



Resim 2 • Yeterli serbest cerrahi sınır ile geniş vulvar rezeksiyon.

milimetre ile 10 mm arasında büyüklükte ve ilk bakışta kondiloma aküminata ya da Buschke-Lowenstein verrüköz karsinomunu taklit eder görünümdeydi. Anüs etrafında lezyon yoktu. Ayrıca, her iki bacakta orta derecede ödem mevcuttu. Vajina ve vajinal kaf normal görünümde, rektal ve vajinal tuşe normaldi. Hastanın sistemik muayenesinde, görüntüleme, rutin biyokimya ve hemogram tetkiklerinde kayda değer bir anormallik yoktu. Serviks kanserinin nüks ettiğini düşündürecek bulguya rastlanmadı. Lezyondan alınan biyopsinin histolojik incelemesinde, hiperkeratozis, papillamatozis, akantozis gösteren çok katlı yassı epitel ile örtülü deri dokusunda papiller dermiste lokalize dilate lenfatikler ile epitel altında dermiste lenfoplazmositer iltihabi hücre infiltrasyonu mevcuttu ve bu morfolojik bulgular ile patoloji sonucu "vulvar lenfanjioma sirkumskriptum" olarak rapor edildi.

Hastaya radikal vulvektomi uygulandı (Resim 2). Papüler lezyonları tamamen çıkaracak ve en az 2 cm temiz cerrahi sınır sağlayacak şekilde radikal vulvektomi uygulandı ve Colles fasiasına ulaşmayı sağlayacak derinlikte yaklaşık 3-4 cm kalınlığında cilt-cilt altı doku bütün olarak eksize edildi. Daha sonra bilateral uyluk iç yüzünden tam kat deri flepi kaldırıldı ve tüm sahayı kapatacak şekilde yerleştirildi (Resim 3). Bilateral fleplerin altına Hemovak dren yerleştirildi. İntraoperatif veya postoperatif cerrahi komplikasyon olmadı. Gün-

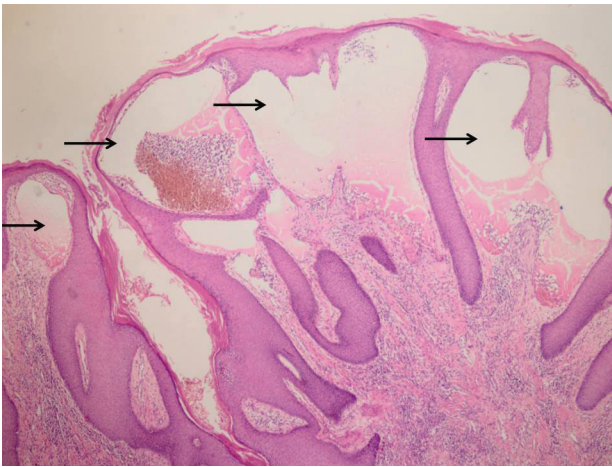


Resim 3 • Geniş vulvar rezeksiyon sonrası rekonstrüksiyon.

lük pansuman ve rutin postoperatif bakımın ardından, postoperatif 3. gün hasta taburcu edildi. Postoperatif 7 ve 15. günlerde kontrole çağrılan hastanın, yara iyileşmesinin tam olduğu ve herhangi bir komplikasyon gelişmediği gözlemlendi. Nihai patoloji raporu, biyopsi raporunun doğrulayacak şekilde "lenfanjioma sirkumskriptum" olarak rapor edildi (Resim 4).

TARTIŞMA

Vulvar lenfanjioma sirkumskriptum nadir rastlanan ve benign bir hastalıktır. İlk kez 1878 yılında Fox ve Fox tarafından tarif edilmiş ve lenfanjektot olarak isimlendirilmiştir (1). Bugün kullanılan Lenfanjioma Sirkumskriptum terimi ise Morris tarafından ilk kez kullanılmıştır (2). Etiyoloji hala tam anlaşılamamış olsa da, vulvadaki lenfatik kanal sisteminin konjenital ya da kazanılmış kusurlarına bağlı geliştiği düşünülmektedir. Cerrahi işlemler ve radyoterapinin pelvisdeki lenf kanallarını tıkaması ve artan hidrostatik basıncın, len-



Resim 4 • Lenfanjioma sirkumskriptum: Epitel altında papiller dermiste lokalize dilate-kistik lenfatik kanallar (oklar) (Hemotoksilen&Eozin x40).

fanjioma oluşumuna sebep olduğu düşünülmektedir (2,6). Hastaların ağrı, lenf sızıntısı, kaşıntı, sellülit ya da eşlik eden enfeksiyöz lezyonlar gibi çok farklı şikayetleri ve klinik prezentasyonları olabilmektedir. Klinik görünüm, birkaç milimetrik veziküler lezyondan, bu olguda olduğu gibi çok yaygın ve tüm vulvayı kaplayan bir vakaya kadar farklı şiddette ortaya çıkabilmektedir. Özellikle yaygın hastalık, kondiloma aküminata ya da Buschke-Lowenstein dev tümörünü taklit edebilmektedir (7,9). Literatürde, servikal karsinomun kutanöz metastazı ile de karışabileceği belirtilmektedir (14). Wilson ve ark'ı, Lenfanjioma zemininden gelişen bir squamoz hücreli karsinom olgusu bildirmişlerdir (10). Tanıda doku biyopsisi altın standarttır. Biyopsi ayırıcı tanıda olduğu gibi, özellikle kanser birlikteliğini ortaya koymak için de gereklidir.

Vulvar lenfanjioma sirkumskriptumun standart bir tedavisi yoktur. Tedavi seçenekleri, egzersiz ve lezyonların üzerine baskı uygulama gibi çok konservatif yaklaşımlardan, radikal cerrahi prosedürlere kadar geniş bir yelpazeyi içerir. Literatürde, çeşitli ablasiv tedaviler, sikloterapi, elektrokoagülasyon teknikleri, CO2 lazer ya da argon lazer tedavisi, %5 imiquimod tedavileri tarif edilmiştir (11-13). Lezyonların büyüklüğü ve yaygınlığı, eşlik eden patolojilerin varlığı ve diğer bir çok faktörler göz önüne alınarak tedavilerin belirlendiği görülmüştür. Ghaemmaghami ve ark., major labiektominin diğer yöntemlerden daha başarılı olduğunu ileri sürerken, Wang ve ark.'ları imiquimod ile başarılı yanıt aldıklarını belirtmişlerdir (11,12).

Tedavide esas amaç bölgedeki lenfatikleri içeren dokunun tam kalınlıkta ve genişlikte çıkarılmasıdır. Nitekim bu olguda olduğu gibi yeterli derinlikte olmayan eksizyonlar sonrası lezyonlar kısa sürede tekrarlayabilmektedir. Literatürde, cerrahi prosedürlerden sonra %23'lük nüks oranları olduğu ve cerrahi dışı yöntemlerde nüksün daha fazla olduğu ileri sürülmüştür (13). Bizim olgumuzda, takip süresi, nüks hakkında yorum yapılamayacak şekilde kısadır, ancak tam kat radikal eksizyon yapılmış olması sebebiyle uzun dönemde bile nüksün olmayacağı düşünülmektedir.

KAYNAKLAR

1. Fox T, Fox TC. On the case of lymphangiectodes with an account of the histology of the growth. *Trans Path Soc, London*. 1879;30:470-6.
2. Morris M. Lymphangioma circumscripium. *International Atlas of rare Skin Diseases*. In: Unna PG, Morris M, Duh-ring LA, Leloir H, editors. London: Lewis; 1889. pp. 1-4.
3. LaPolla J, Foucar E, Leslin B, et al. Vulvar lymphangioma circumscripium: a rare complication of therapy for squamous cell carcinoma of cervix. *Gynecol Oncol* 1985; 22: 363-6.

4. Schwab RA, McCollough ML. Acquired vulvar lymphangiomas: a sequel of radiation therapy. *Cutis* 2001; 67: 239-40.
5. Jappe U, Zimmermann T, Kahle B, et al. Lymphangioma circumscriptum of the vulva following surgical and radiological therapy of cervical cancer. *Sex Transm Dis* 2002; 29: 533-5.
6. Weyers W, Nilles M, König M. Lymphangioma circumscriptum cysticum following surgical and radiologic therapy. *Hautarzt* 1990; 41: 102-4.
7. Sah SP, Yadav R, Rani S. Lymphangioma circumscriptum of the vulva mimicking genital wart: a case report and review of literature. *J Obstet Gynaecol Res.* 2001 Oct;27(5):293-6.
8. V. Mehta, S. Nayak, C. Balachandran, P. Monga, R. Rao Extensive congenital vulvar lymphangioma mimicking genital warts. *Indian J Dermatol*, 55 (2010), pp. 121–122
9. Horn LC, Kühndel K, Pawlowitsch T, Leo C, Einkenkel J. Acquired lymphangioma circumscriptum of the vulva mimicking genital warts. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 2005 Nov 1;123(1):118-20. Epub 2005 Oct 10.
10. Wilson GR, Cox NH, McLean NR, Scott D. Squamous cell carcinoma arising within congenital lymphangioma circumscriptum. *Br J Dermatol.* 1993 Sep;129(3):337-9
11. Ghaemmaghami F, Karimi Zarchi M, Mousavi A. Major labiaectomy as surgical management of vulvar lymphangioma circumscriptum: three cases and a review of the literature. *Arch Gynecol Obstet* 2008; 278: 57-60.
12. WangJY, Liu LF, Mao XH. Treatment of lymphangioma circumscriptum with topical imiquimod 5% cream. *Dermatol. Surg.* Sep;38(9):1566-9.
13. Vlastos AT, Maipica A, Follen M. Lymphangioma circumscriptum of the vulva: a review of literature. *Obstet Gynecol* 2003; 101: 946-54.
14. Kim WJ, Park HJ, Kim HS, Kim SH, Ko HC, Kim BS, Kim MB. Vulval metastasis from squamous cell carcinoma of the cervix clinically presenting as lymphangioma circumscriptum. *Ann Dermatol.* 2011 ;23 :S64-7.