

Erişkinlerde Görülen Nadir Bir Yumuşak Doku Tümörü: Hibernom Olgu Sunumu

A Rare Soft Tissue Tumor in Adults: Hibernoma a Case Report

Tuğba Özbek¹, Canten Tataroğlu¹, Özlem Erdal Özdemir¹, Ayşe Gül Örmeci¹, Ceren Günel²

¹Adnan Menderes Üniversitesi Uygulama ve Araştırma Hastanesi, Tıbbi Patoloji Kliniği, Aydın, Türkiye

²Adnan Menderes Üniversitesi Uygulama ve Araştırma Hastanesi, Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Kliniği, Aydın, Türkiye



Anahtar Kelimeler

Hibernom, kahverengi yağ doku, Oil-Red-O

Keywords

Hibernoma, brown fat tissue, Oil-Red-O

Geliş Tarihi/Received : 29.09.2014

Kabul Tarihi/Accepted : 08.11.2014

doi:10.4274/meandros.1929

Yazışma Adresi/Address for Correspondence:

Dr. Tuğba Özbek,
Adnan Menderes Üniversitesi Uygulama ve
Araştırma Hastanesi, Tıbbi Patoloji Kliniği,
Aydın, Türkiye
Tel.: +90 256 444 12 56
E-posta : tugba_ozbek04@hotmail.com

Sunulduğu Kongre: 23. Ulusal Patoloji Kongresi, 6-10
Kasım 2013, İzmir.

©Meandros Medical and Dental Journal, Galenos
Yayınevi tarafından yayımlanmıştır.

Öz

Hibernom, fetal kahverengi yağ doku kalıntılarından ortaya çıkan, seyrek görülen, kahverengi yağ doku tümörüdür. Genellikle erişkinlerde görülen, geniş, asidofilik, granüler ve vakuoler sitoplazmalı, santral nükleuslara sahip hücrelerden meydana gelmiş, kapsüllü, sarı-kahverengi, ağrısız ve benign yumuşak doku tümörüdür. Olgumuz 31 yaşında, boynunda şişlik şikayeti olan erkek hastadır. Yapılan görüntülemeler sonucu lezyonun lipom ile uyumlu olduğu bildirilmiştir. Eksizyon sonrası makroskopik olarak kahverengi, yer yer kirli sarı renkli yağ doku görünümünde, kesit yüzleri kahverengi ve hemorajik materyaller izlenmiştir. Mikroskopik incelemede vakuollü, granüler ve eozinofilik sitoplazmalı, yer yer santral yer yer periferik yerleşimli küçük, yuvarlak nükleuslu hücrelerden oluşan tümör gözlenmiştir. Uygulanan histokimyasal Oil-Red-O ile bu hücreler boyanmış ve lipositlerle uyumlu olarak değerlendirilmiştir. Bu bulgularla hastaya hibernom tanısı konulmuştur. Histopatolojik olarak, hibernom, granüler hücreli miyoblastom, yuvarlak hücreli liposarkom, lipoblastomatozis, sebace adenom, pleomorfik lipom ve kahverengi yağın normal birikimlerinden ayırt edilmelidir. Tedavide tümörün total eksizyonu yeterlidir. Bu olgu, nadir görülmesi, basit eksizyonla tedavi edilebilmesi ve özellikle yüksek damarlanma gösteren lezyonların ayırıcı tanısında akılda tutulması gerektiği için sunulmaya değer bulunmuştur.

Abstract

Hibernoma is a rare lipomatous tumor of brown fat origin that emerges from remnants of fetal brown adipose tissue. They are encapsulated, yellow- tan colored, painless and benign soft tissue tumors, usually seen in adults and occur with large cells that have acidophilic, granular and vacuolar cytoplasm and central nuclei. Our case is a 31-year-old male who had swelling in the neck. Imaging studies depicted a lesion compatible with lipoma. Macroscopic evaluation of the excision specimen revealed brown, tan-yellow colored and haemorrhagic cut surface compatible with fat tissue. In microscopic examination, a tumor composed of cells with vacuolar, granular and eosinophilic cytoplasm, centrally or peripherally localized small, round nuclei, were observed. These cells were stained with histochemical Oil-Red-O and were evaluated to be comparable with lipocytes. With these findings, the patient was diagnosed as having hibernoma. Histopathologically, hibernoma must be distinguished from granular cell myoblastoma, round cell liposarcoma, lipoblastomatosis, sebaceous adenoma, pleomorphic lipoma and normal brown fat accumulation. Total excision of the tumor is sufficient. We present this case for its rarity, and for the fact that it can be treated with simple excision, and should be kept in mind especially in the differential diagnosis of lesions with high vascularity.

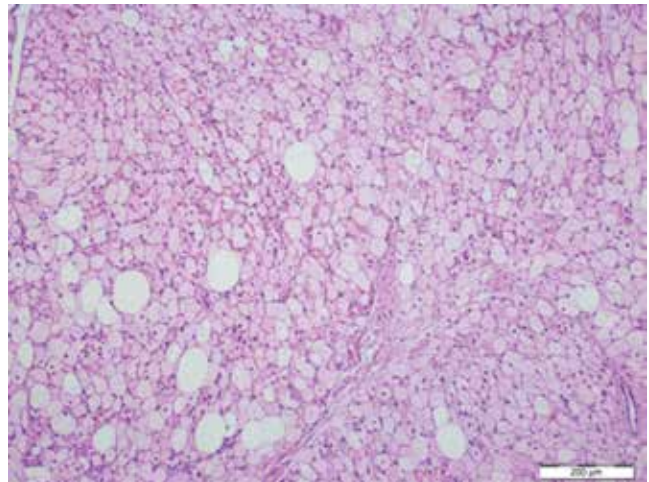
Giriş

Hibernom, fetal kahverengi yağ doku kalıntılarından gelişen ve nadir görülen benign bir tümördür. Genellikle ağrısız, yavaş büyüyen kitleler şeklinde karşımıza çıkarlar (1). Bu tümörler yavaş gelişirler ancak 10 cm çapa kadar ulaşıp çevre dokulara bası yapabilirler. Şu ana kadar literatürde yaklaşık 100 olgu bildirilmiş olup bunların %10'u baş-boyun bölgesi yerleşimlidir (2). Benign lipomatöz tümörlerin %1,6'sını ve tüm adipositik tümörlerin yaklaşık %1,1'ini oluştururlar. Etiyolojileri bilinmemektedir (3). İlk olarak 1906'da Merkel psödo-lipom olarak tarif etmiş; hibernom ismini ise 1914'te Gery ve Bonnel (4) kullanmıştır. Genellikle erişkinlerde görülür ve özellikle sırtta, periskapuler ve interskapuler bölgede, boyun, koltuk altı, omuz, göğüs, uyluk ve retroperitonda deri altında yerleşir (5). Çeşitli histolojik varyantları bulunmaktadır ancak bu varyantların prognostik önemi yoktur. Farklı hücresel komponentlerin değişik oranlarda bulunması manyetik rezonans gibi radyolojik görüntülemelerde farklı sinyallerin oluşmasına yol açar (6). Klinik olarak lipomla karışabilir ve radyolojik görüntülemelerle liposarkom gibi hipervasküler lezyonlardan kesin olarak ayırt edilemez (7).

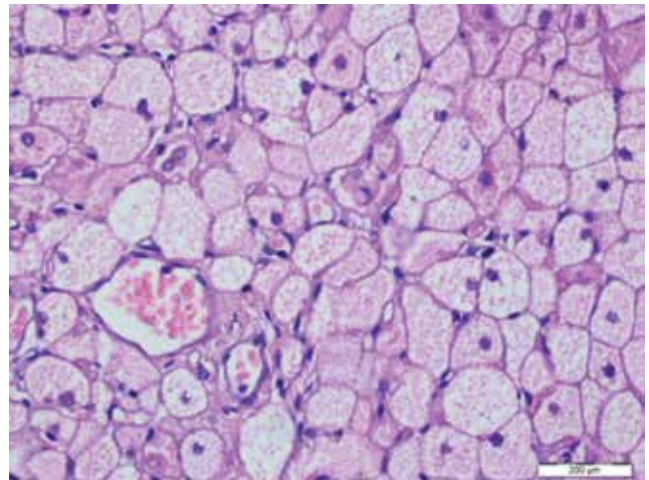
Olgu Sunumu

Olgu 31 yaşında erkek hastadır. Yaklaşık bir yıldır boyun sağ yanında şişlik şikayeti bulunan hastaya başvurduğu bir merkezde yapılan ultrasonografide sağ supraklaviküler bölgede lipomla uyumlu lezyon saptanmıştır. Boyun spiral bilgisayarlı tomografi incelemesinde lipom ya da konglomere lenfadenomegali ile uyumlu olabilecek kitle lezyonu tariflenmiştir.

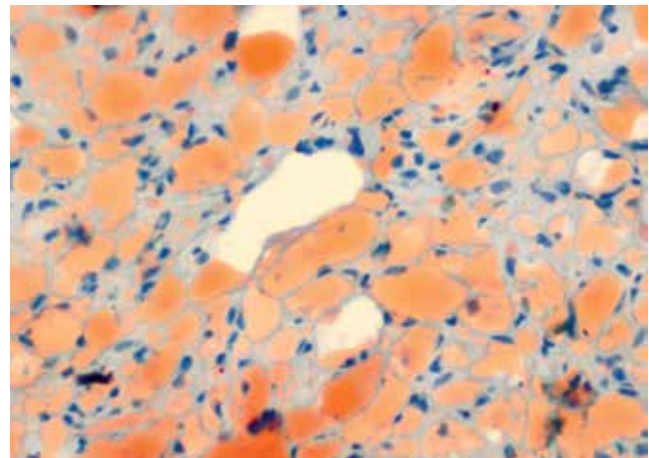
Hastada sağ supraklaviküler bölgede, klavikula altından mediastene dek uzanan düzensiz sınırlı lipomatöz lezyon gözlenmiştir. Yapılan kitle eksizyonu sonucu makroskopik değerlendirmede en büyüğü 5 cm, en küçüğü 1 cm çapında, yer yer kapsüllü görünümde, çoğu alanda kahverengi, yer yer kirli sarı renkli yağ doku görünümünde alanlar içeren 4 adet parçalı yumuşak doku materyali izlenmiştir. Materyal kesit yüzleri yer yer kanama odakları içermektedir. Mikroskopik incelemede vakuollü, granüler ve eozinofilik sitoplazmalı hücrelerden oluşan tümör gözlenmiştir (Resim 1). Tümör hücrelerinin bir kısmında oval-yuvarlak nükleuslar



Resim 1. Vakuollü, granüler ve eozinofilik sitoplazmalı hücreler (hematoksilen&eosin, x100)



Resim 2. Periferik ve santral yerleşimli nükleuslu, vakuollü sitoplazmalı hücreler (hematoksilen&eosin, x400)



Resim 3. Oil-Red-O boyasında sitoplazmik lipid boyanması (Oil-Red-O, x200)

santralde, bir kısmında ise periferde yerleşiktir. Tümör çok sayıda küçük kapiller damar içermekte olup, hücreler fibrovasküler septalarla bölünmüş lobüller oluşturmuştur. Hücrelerde atipi ve mitotik aktivite gözlenmemiştir (Resim 2). Uygulanan histokimyasal Oil-Red-O boyası ile lipositler boyanmıştır (Resim 3). Bu bulgularla hastaya hibernom tanısı konulmuştur.

Tartışma

Termogenezi sağlayan kahverengi yağ doku normalde fetüste bulunur ve doğumdan sonra yaş ilerledikçe yavaş yavaş beyaz adipoz doku ile yer değiştirir. Ancak değişik oranlarda erişkin yaşlara dek kalabilir (8).

Hibernomlar, seyrek görülen, fetal kahverengi yağ doku kalıntılarından ortaya çıkan benign yumuşak doku tümörleridir (1). Bu tümörün kahverengi olması vaskülaritesine ve mitokondriden zengin, granüler, eozinofilik sitoplazmalı hücrelerden oluşmasına bağlıdır. Ancak aynı tümörün farklı bölgelerinde değişik hücre tiplerinin bulunmasına bağlı olarak tümör rengi kahverengiden sarıya değişiklik gösterebilir. Kahverengi yağ doku kalıntıları erişkinlerde genellikle boyun, aksilla, mediasten, periaortik ve perirenal bölgelerde bulunur. Ayrıca fetüste interskapuler bölge, posterior abdominal duvar, suprailiak ve peripankreatik yağ doku ve otonom ganglionların yanında da bulunmaları nedeniyle bu alanlarda da hibernomların görülebilmesi şaşırtıcı değildir (8). Hibernomlar genellikle yuvarlak, iyi sınırlı, kapsüllü, geniş, asidofilik, granüler ve vakuoler sitoplazmalı, merkezi nükleuslara sahip hücrelerden meydana gelmiş, yavaş büyüyen, sarı-kahverengi ağrısız tümörlerdir. Genellikle küçük kapillerler içeren lobüller şeklinde gelişim gösterirler. Sıklıkla erişkinlerde görülür ve benign özelliindedir (5). Pleomorfizm, hiperkromazi ve lobüle nükleus içeren nükleer atipi bulguları nadir de olsa görülebilir. Gaffney ve ark., (9) hibernomların ayırt edici morfolojik özelliklerini çok iyi tanımlamışlardır. Daha çok yaşamın 3. ya da 4. dekadında görülür, cinsiyet ayrımı yoktur (7). Ortalama görülme yaşı 36'dır. Artmış p53 gen ekspresyonu ile bu genin ürünü proteinin inaktivasyonunun tümörün gelişiminde rolü olduğu gösterilmiştir (8). Genellikle ekstremitelerde (%30 uyluk bölgesinde) yerleşir. Literatürde boyun bölgesinde tariflenen sadece yaklaşık 10 olgu bulunmaktadır (10).

Yapılan çalışmalarda hibernomlarda üç veya dört tip hücre tarif edilmiştir:

Birinci tip: Küçük, eozinofilik, granüler, vakuolsüz sitoplazmalı, soluk, oval veya yuvarlak santral nükleuslu hücreler.

İkinci tip: Geniş, çok sayıda lipid vakuolleri içeren morular hücreler.

Üçüncü tip: Çok geniş multivakuole sitoplazmalı, lipoblastlara benzeyen hücrelerdir. Bu tür hücreleri bulunduran tümörler damardan da zengindir.

Dördüncü tip: Matür yağ hücrelerinin aynısıdır (5).

Hibernomların 4 histolojik varyantı bulunur: tipik, miksoid, lipom benzeri ve işsi hücreli. Hepsi benign özelliindedir (2).

Hibernomlar genellikle iyi sınırlı ve kapsüllü olarak tanımlanırlar. Ancak komşu dokulara özellikle de çizgili kaslara infiltrasyon gösterebilirler. Hibernomlar önemli organların yanında lokalize oldukları zaman klinik komplikasyonlara yol açabilirler. Klinik olarak lipomla karışabilir ve radyolojik görüntülemelerle liposarkom gibi hipervasküler lezyonlardan kesin olarak ayırt edilemez (7). Histopatolojik olarak, granüler hücreli miyoblastom, yuvarlak hücreli liposarkom, lipoblastomatozis, sebace adenom, pleomorfik lipom ve kahverengi yağın normal birikimlerinden ayırt edilmelidir (11). Genel olarak yağ nekrozundan iyi sınırlı olması, uniform görüntüsü ve histiosit içermemesi; lipomdan multivakuole liposit içermesi; atipik lipomatöz tümörden nükleer atipi içermemesi; miksoid liposarkomdan sıklıkla yüzeysel yerleşmesi ve vasküler paterninin "chicken wire" görünümünde olmaması ve iyi diferansiye liposarkomdan atipi içermemesi ve daha yüzeysel yerleşmesiyle ayırt edilebilir (12). Bazı yayınlarda malign hibernomların da olabileceği bildirilmişse de metastaz görülmemiştir (5). Lezyonun inkomplet eksizyonu büyümeye devam etmesine ve rekürrensine neden olur (8). Ancak rekürrens, literatürde, Teplitz ve ark.'nın (13) özet olarak yayımladıkları olgu dışında bildirilmemiştir. Her ne kadar benign olsalar da çok büyük boyutlara ulaşabilme ve çevre dokulara bası yapabilme ihtimalleri nedeniyle her zaman eksizyonları önerilir. Tedavide tümörün total olarak çıkarılması yeterlidir (7).

Etik

Hasta Onayı: Çalışmamıza dahil edilen tüm hastalardan bilgilendirilmiş onam formu alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Editörler kurulu ve editörler kurulu dışında olan kişiler tarafından değerlendirilmiştir.

Yazarlık Katkıları

Cerrahi ve Medikal Uygulama: Ceren Günel, Tuğba Özbek, Konsept: Tuğba Özbek, Canten Tataroğlu, Dizayn: Tuğba Özbek, Veri Toplama veya İşleme: Ceren Günel, Tuğba Özbek, Analiz veya Yorumlama: Tuğba Özbek, Özlem Erdal Özdemir, Ayşe Gül Örmeci, Literatür Arama: Tuğba Özbek, Yazan: Tuğba Özbek, Ayşe Gül Örmeci, Özlem Erdal Özdemir.

Çıkar Çatışması: Yazarlar bu makale ile ilgili olarak herhangi bir çıkar çatışması bildirmemiştir.

Finansal Destek: Çalışmamız için hiçbir kurum ya da kişiden finansal destek alınmamıştır.

Kaynaklar

1. Guidry CA, McGahren ED, Rodgers BM, Kane BJ. Pediatric cervicomedistinal hibernoma: a case report. *J Pediatr Surg* 2013; 48: 258-61.
2. Dagher W, Fedore L, Wein RO. Hibernoma presenting as an asymptomatic neck mass. *Am J Otolaryngol* 2013; 34: 755-6.
3. Mavrogenis AF, Coll-Mesa L, Drago G, Gambarotti M, Ruggieri P. Hibernomas: clinicopathological features, diagnosis, and treatment of 17 cases. *Orthopedics* 2011; 34: e755-9.
4. Gery L, Bonnel MF. Discussion du Tumeur du Creux de l'Aisselle. *Bull Men Soc Anat (Paris)* 1914; 89: 110-2.
5. Ökten T, Kandemir O. Kahverenkli Yağ Dokusunun Benign Tümörü: Hibernom. *Türk Patoloji Dergisi* 1991; 7: 55-6.
6. Ritchie DA, Aniq H, Davies AM, Mangham DC, Helliwell TR. Hibernoma-correlation of histopathology and magnetic-resonance-imaging features in 10 cases. *Skeletal Radiol* 2006; 35: 579-89.
7. Santambrogio L, Cioffi U, De Simone M, Nosotti M, Pavoni G, Caputo V, et al. Cervicomedistinal hibernoma. *Ann Thorac Surg* 1997; 64: 1160-2.
8. Lele SM, Chundru S, Chaljub G, Adegboyega P, Haque AK. Hibernoma: a report of 2 unusual cases with a review of the literature. *Arch Pathol Lab Med* 2002; 126: 975-8.
9. Gaffney EF, Hargreaves HK, Semple E, Vellios F. Hibernoma: distinctive light and electron microscopic features and relationship to brown adipose tissue. *Hum Pathol* 1983; 14: 677-87.
10. Peycru T, Tardat E, Schwartz A, Dufau JP, Benois A, Durand-Dastes F. Hibernoma of the neck: a rare benign tumour. *Can J Surg* 2009; 52: E52-3.
11. Biliński PJ, Junk S, Szukalski J. Hibernoma in a 13-year-old boy. *Med Pediatr Oncol* 2000; 35: 436-7.
12. Stanford University, Faculty of Medicine, Surgical Pathology Criteria, Hibernoma. 2014, Available from: URL: <http://surgpathcriteria.stanford.edu/softfat/hibernoma/differentialdiagnosis.html>
13. Teplitz C, Farrugia R, Glicksman AS. Malignant hibernoma does exist [abstract]. *Lab Invest* 1980; 42: 154-5.