

Plasental Koryoanjioma: Olgu Sunumu

Placental Chorioangioma: Case Report

**Pınar Kumru *, Cem Ardiç *, Oya Demirci *, Oya Pekin *,
Murat Muhcu *, Semih Tuğrul *, Cuma Yorgancı ****

(*) S.B. Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları EAH, Perinatoloji Kliniği, İST.

(**) S.B. Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları EAH, Patoloji Kliniği, İST.

ÖZET

Plasental koryoanjiomalar, plasentanın en sık rastlanan benign tümörüdür. Tümör boyutuyla ilişkili olarak fetal morbiditeye neden olabilir. Bu olgu sunumunda 30 yaşında G2 P1, 22. gebelik haftasında, yüksek Maternal Serum Alfa-Fetoprotein (MSAFP) nedeniyle perinatoloji polikliniğine refere edilmiş bir hastayı değerlendirdik. Ultrasonografik değerlendirmede; plasenta uterus sol posteriorda olup, lateralinde arteriyo-venöz vaskülarizasyon izlenen, 40x38 mm boyutlarında solid görünümlü kitle tespit edildi. Fetusta anomali saptanmadı. Plasental koryoanjioma ön tanısı ile gebelik takibe alındı. Gebeliğin 32. haftasında kitlenin boyutlarının 64x54 mm olduğu ve polihidroamniyosun eşlik ettiği tespit edildi. Yapılan Doppler ultrasonografide umbilikal arterde end-diyastolik akım kaybı olması nedeniyle gebe hospitalize edildi. Maternal steroid uygulaması ile fetal akciğer matürasyonu takiben, geçirilmiş sezaryen öyküsü nedeniyle sezaryen ile doğurtuldu. Plasentanın patolojik incelemesinde koryoanjioma tanısı doğrulandı.

Sonuçta, maternal serum AFP yüksekliği tespit edilen olgular, ultrasonografi ile koryoanjiom açısından değerlendirilmelidir. Plasental koryoanjioma tespit edilen gebeler olası yüksek fetal ve maternal komplikasyonlar nedeniyle yakın takip edilmelidir.

Anahtar kelimeler: Maternal Serum Alfa-Fetoprotein, Koryoanjioma, Doppler Ultrasonografi.

ABSTRACT

Chorioangiomas are the most common benign tumors of placenta. In our case, a 30 years old woman, gravida 2, para 1 at 22 weeks of gestation was referred to our Perinatology Department due to high levels of maternal serum alpha-fetoprotein (MSAFP). Doppler ultrasonography showed that the placenta was attached to left-posterior wall of uterus and a 40x38 mm solid, vascularized mass was present in it. No fetal abnormality was detected. Patient was followed with preliminary diagnose of placental chorioangioma and at 32 weeks of gestation, it was detected that the size of the mass was 64x54 mm and accompanied by polyhydramnios. Patient was hospitalized because of abnormal umbilical artery Doppler finding as absence of end diastolic flow. After applying corticosteroids and completion of fetal lung maturation, a caesarean section was performed due to previous cesarean delivery history. Diagnose of placental chorioangioma was confirmed after pathological examination.

As a result, we suggest; detailed evaluation of placenta should be performed in patients with elevated MSAFP levels. Patients with preliminary diagnose of placental chorioangioma should be followed closely for possible fetal and maternal complications.

Key words: Maternal Serum Alpha-Fetoprotein, Chorioangioma, Doppler Ultrasonography.

İletişim Bilgileri:

Sorumlu Yazar: Pınar Kumru

Yazışma Adresi: Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları EAH, Perinatoloji Kliniği, İstanbul

E-mail: pkumru@gmail.com

Makalenin Geliş Tarihi: 11.05.2014

Makalenin Kabul Tarihi: 24.07.2014

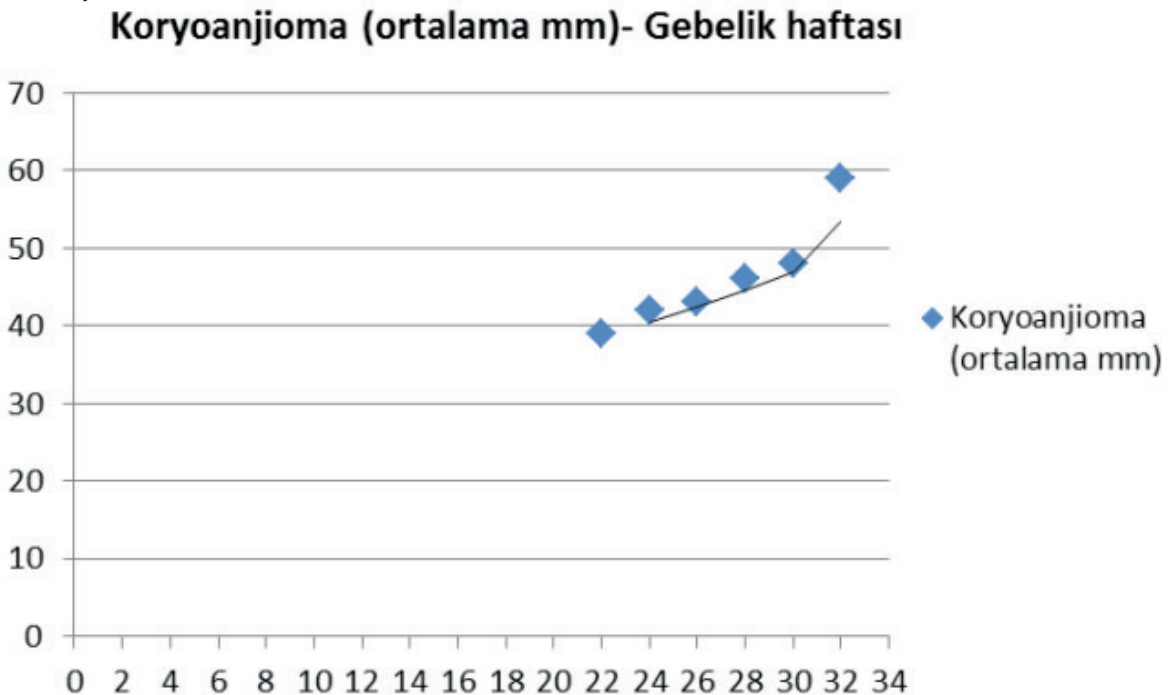
GİRİŞ

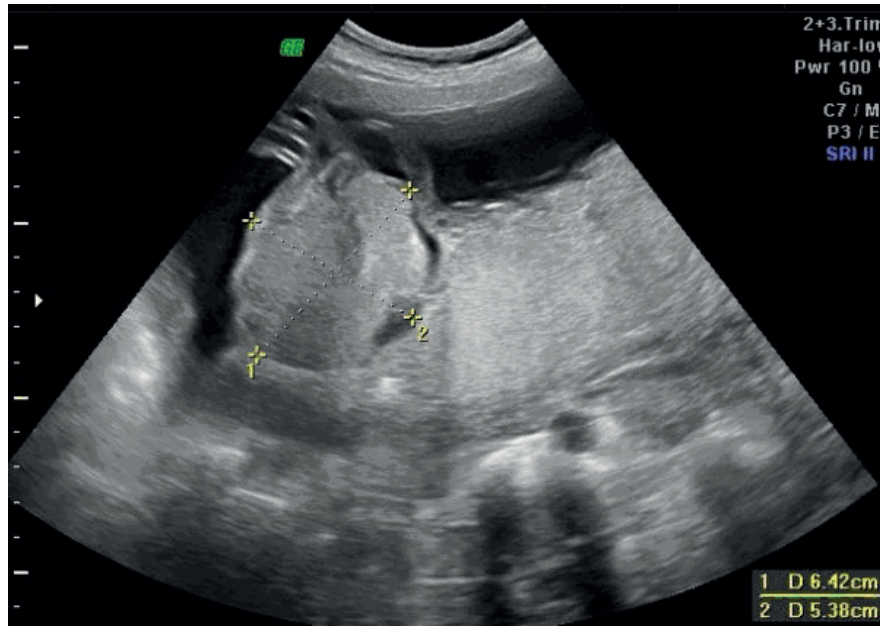
Koryoanjioma; kapiller ve villöz stromanın proliferasyonu ile karakterize, en sık saptanan plasental benign vasküler neoplazidir. Küçük koryoanjiomaların prevalansı term plasenta muayenesinde yaklaşık %1 olarak bildirilmiştir (1, 2). Koryoanjiomalar çoğunlukla tek, enkapsüle ve intraplasental olup çoğu küçük boyutta olduğundan rutin ultrasonografik incelemede ve gross patolojik muayenede gözden kaçabilir. Küçük koryoanjiomaların çoğu asemptomatik olarak kalır ve gebelik seyri sırasında herhangi bir komplikasyona neden olmaz. Geniş (dev) koryoanjiomalar, >4-5 cm tümörlerdir, prevalansı daha nadir (1/9000-50000) olup, sıklıkla prenatal dönemde yapılan ultrasonografi sırasında veya plasentanın rutin patolojik muayenesinde tanı konulabilir (3). Maternal ve fetal komplikasyonlar, umbilikal kord insersiyon bölgesine yakın oluşan büyük koryoanjiomalarda daha sık tespit edilmiş ve yüksek perinatal ölüm oranı (%30-40) bildirilmiştir (4, 5). Ayrıca intrauterine gelişim kısıtlılığı (IUGR), hiperdinamik sirkülasyon, kardiyomegali, anemi ve nonimmün hidrops fetalis gibi bir dizi ciddi fetal komplikasyon ile ilişkili bulunmuştur (5). Maternal komplikasyonlar ise preeklampsi, polihidramnios, antepartum hemoraji ve erken doğum eylemidir (6). Ayrıca koryoanjioma insidansı, çoğul gebeliklerde artmış olarak bildirilmiştir (7). Bu olgu sunumu ile, plasental koryoanjioma tespit edilen gebeliğin takip ve yönetiminin tartışılması amaçlanmıştır.

OLGU SUNUMU

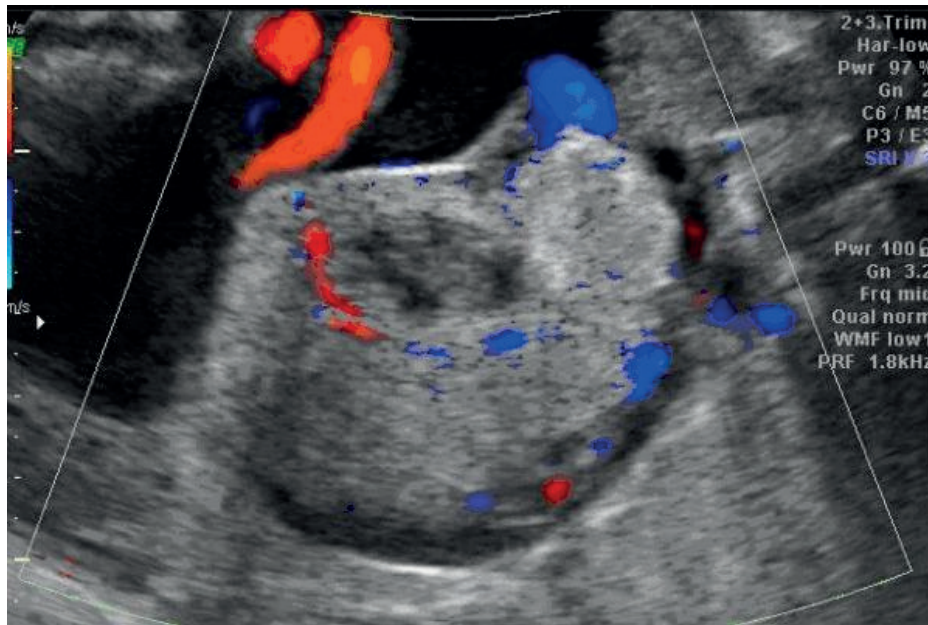
Otuz yaşında, G2 P1 olan gebe, son adet tarihine göre 22. gebelik haftasında, yüksek MSAFP (3,5 MoM) nedeni ile hastanemizin perinatoloji polikliniğine refere edilmiştir. Yapılan ultrasonografik değerlendirmede; fetusun biyometrik ölçümleri 22 gebelik haftası ile uyumlu olduğu plasentanın sol posteriorda yer aldığı ve plasenta lateralinde yaklaşık 40x38 mm boyutlarında yuvarlak, uterin kaviteye doğru uzanan, yüzeysel ve solid plasental tümör tespit edildi. Doppler ultrasonografide kitlenin yoğun vaskülarizasyona sahip olduğu ve umbilikal kord ile yakın ilişkisi olduğu gözlemlendi. Fetal anatomi değerlendirilmesinde, ek anomali saptanmadı. Ayrıca orta serebral arterde PSV 21 cm/sn (<1 MoM) saptandı. Plasental koryoanjioma ön tanısı ile aileye mevcut bulgular, yönetim seçenekleri ve prognoz hakkında bilgi verildi. Ayrıca uygulanabilecek invaziv işlemler, alkol enjeksiyonu ve endoskopik laser koagülasyon prosedürlerini uygulayan merkezler seçenek olarak sunuldu. Fakat aile tarafından invaziv işlemler kabul edilmedi ve perinatoloji kliniğimizde takibe alındı. 2 hafta aralıklarla yapılan takiplerde, ultrasonografi ile kitle boyutunun artışı, fetal anemi, kalp yetmezliği ve hidrops fetalis açısından değerlendirilme yapıldı. Otuz ikinci gebelik haftasına kadar iki hafta aralıklarla yapılan muayenelerde, kitle boyutu, fetal biyometrik ölçümler ve doppler değerlendirmesinde patolojik herhangi bir bulgu saptanmazken, 32. gebelik haftasında ultrasonografik değerlendirmede, kitle boyutlarının belirgin olarak arttığı

Tablo 1: 22. Gebelik haftasında tespit edilen plasental koryoanjiomanın 2 hafta aralıklarla yapılan ultrasonografide ortalama boyutu





Resim 1: 32. gebelik haftasında ultrasonografide plasental koryoanjiomanın görüntüsü.



Resim 2: Renkli Doppler ultrasonografide plasental koryoanjiomanın görüntüsü.

(64x54mm), yoğun vaskularizasyon gösterdiği ve polihidramniosun eşlik ettiği tespit edildi (Tablo 1, Resim 1, 2). Ayrıca fetal ultrasonografik muayenede; BPD: 80mm (25. persentil), HC:285mm (10. persentil), AC:262mm (25. persentil), FL:61mm (50. persentil), umbilikal arterde end-diyastolik akım kaybı, MCA-PSV: 50cm/sn (1,29 MoM), MCA-PI: 1.40 ve triküs-pit regürjitasyonunun tespit edilmesi nedeni ile gebe kliniğimizde hospitalize edildi. Ductus venosus PI 95. persentil üzerinde olmasından dolayı fetal akciğer matürasyonu için steroid (12mg betametazon 24 saat aralarla iki doz) uygulandı ve takiben, daha önceki doğumu sezaryen olan gebe sezaryen ile 1650 gr erkek bebek, 1-5. dakika APGAR'ı 5-7 olarak doğurtuldu. Plasentanın makroskopik muayenesinde fetal yüzde yuvarlak solid kitlenin varlığı tespit edildi (Resim 3) ve kitlenin patolojik inceleme-

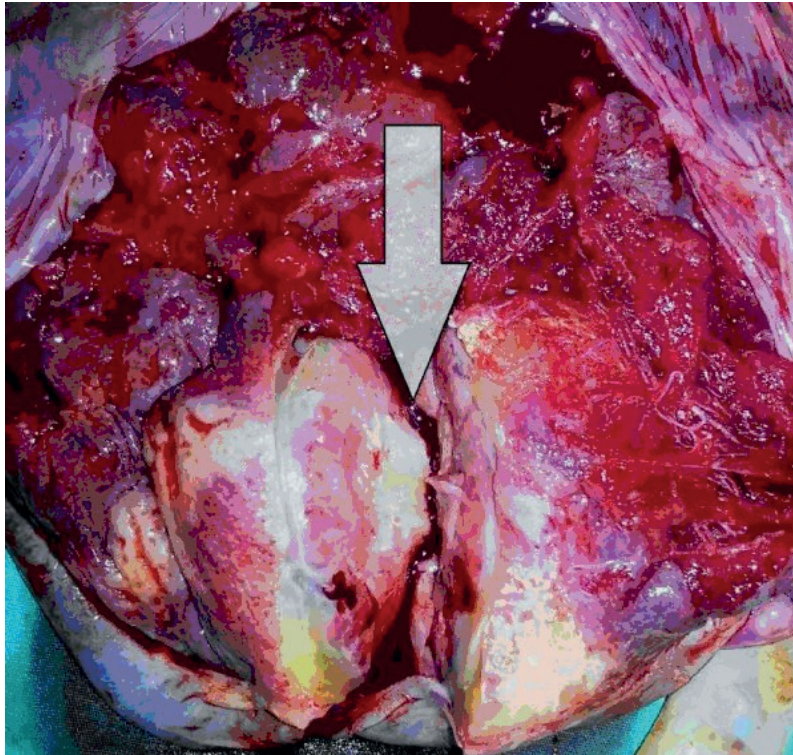
sinde koryoanjiom tanısı doğrulandı (Resim 4). Bebek yenidoğan ünitesinde sağ kalp yetmezliği ve fetal anemi ön tanıları ile takip ve tedavi edildi. Transfüzyon yapılmayan bebek, takip ve tedavi sonucu 12. günde 1920 gr olarak taburcu edildi. Hastadan olgu sunumu için, detaylı bilgilendirilmiş gönüllü onam formu imzaları alınmıştır.

TARTIŞMA

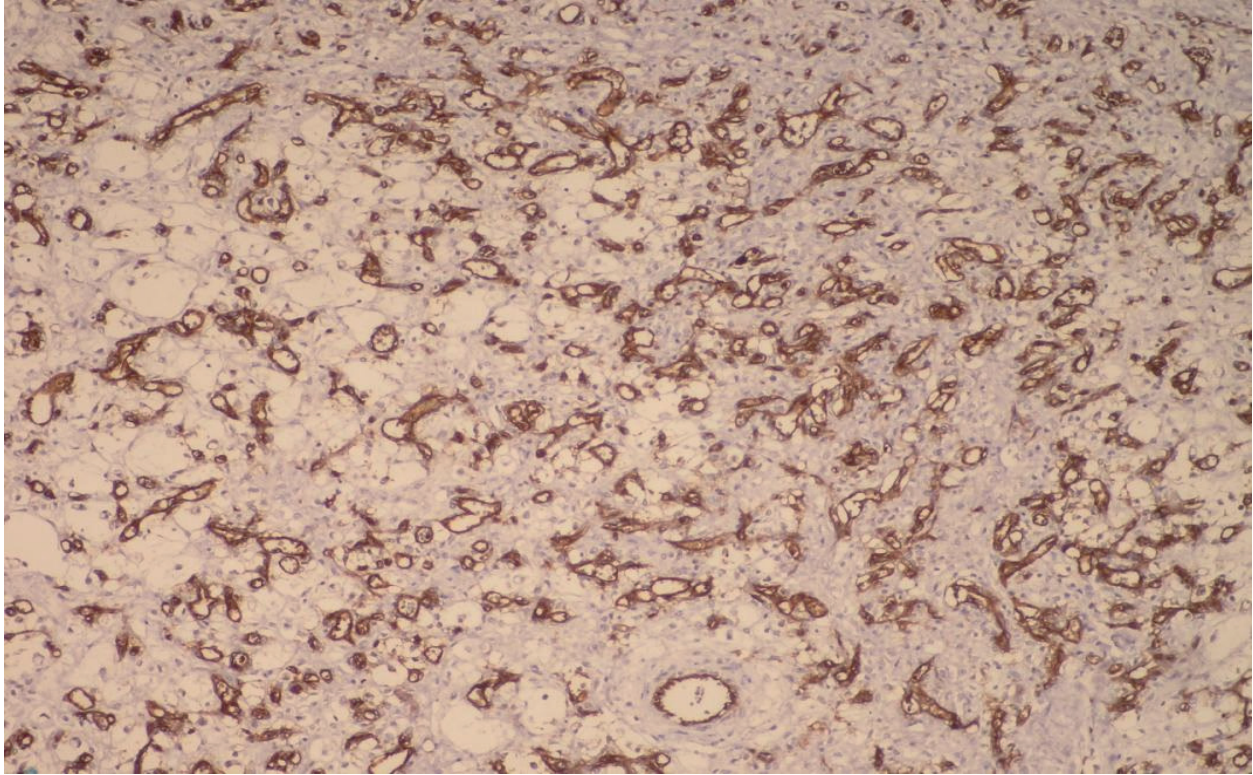
Plasental koryoanjiomalar, primitif koryonik mezektimden kaynaklanan plasentanın en sık rastlanan benign tümörüdür (8). Klinik bulguları nadir olan tümör, genelde >4-5 cm ise daha sık maternal ve fetal komplikasyonlara neden olur. En sık tespit edilen bulgular polihidramnios, konjestif kalp yetmezliği, anemi, İUGR, prematürite ve perinatal ölüm'dür. Kli-

nik komplikasyonların nadir olması nedeniyle, çoğu plasental koryoanjiomalar ultrasonografik değerlendirme sırasında dikkatten kaçabilir. Fakat daha önceki literatürlerde de bildirildiği gibi, plasental koryoanjioma varlığı kötü fetal sonuçlarla ilişkilidir (4, 6). Plasental tümörlerin tanısında gri skala ultrasonografi ve doppler ultrasonografi kullanılabilir. Bromley ve Benecerraf gri skala ultrasonografi ile 10 tane solid plasental tümörü incelemiş ve plasental koryoanjiomaların görüntüsünün, plasental hemorajiden farksız olduğunu bildirmişlerdir (9). Abondan kan akımı ve tek, geniş besleyici damarın izlendiği doppler ultrasonografi, plasental koryoanjioma ile komplike olan gebeliğin tanı ve yönetiminde büyük katkı sağlamaktadır (10). Plasental koryoanjiyoma ayırıcı tanısında hidatiform mol, dejenere leiomyom, koryoepitel-yoma, plasental teratom, intraplasental hemoraji ve plasenta dekolmanı akla gelmelidir (1, 3, 5). Maternal ve fetal komplikasyonlar büyük boyutta olan ve kord insersiyon bölgesine yakın koryoanjiomalarda daha sık rastlanmaktadır. Olgumuzda saptadığımız maternal komplikasyonlardan olan polihidramnios, plasental koryoanjioma olgularına %18-35 eşlik edebileceği ve tümörün büyüklüğü ile ilişkili olabileceği bildirilmiştir (11) Ayrıca Api ve arkadaşları, üçüncü trimesterin erken döneminde, dev bir plasental koryoanjiyomaya sekonder olarak gelişmiş polihidramniosla bağlı, spontan uterin rüptürle komplike olan ciddi bir maternal komplikasyon olgusu sunmuşlardır (12). Polihidramniosun olası etyolojisinde ise; fetal hiperdinamik

sirkülasyon ile ilişkili olarak artan idrar üretimi veya tümör yüzeyine komşu plasentadan sıvının transüstasyonu mekanizması sorumlu olabileceği bildirilmiştir (13). Bizim olgumuzda; 32. gebelik haftasında MCA-PSV yüksek olması nedeniyle fetal hiperdinamik sirkülasyon hipotezini desteklemektedir. Olgumuzda tespit etmediğimiz ama literatürde bildirilen hidropsun etyolojisinde ise, koryoanjiomadaki şant etkisi ile oluşan hiperdinamik dolaşım veya fetomaternal hemoraji, mikroanjiopatik hemoliz veya hemodülsiyon ile oluşan fetal anemi nedeniyle gelişen kardiyak yetmezlik bulunmaktadır (14, 15). Koryoanjioma olgularının takibinde, MCA-PSV ve triküspit regürjitasyonunun incelenmesinin, fetal anemi ve hiperdinamik durumun değerlendirilmesi açısından takipte önemli olduğu bildirilmiş ve kullanılması önerilmiştir (5). Koryoanjioma olgularında gelişen diğer bir komplikasyon İUGR olup, altta yatan mekanizma kesin olarak tanımlanamamıştır. Ama tümörün plasentanın fonksiyonel kapasitesini azalttığı ve ölü boşluk oluşturarak uteroplasental yetmezliğe ve bunu takiben kronik hipoksi, fetal distress, IUGR ve fetal ölüme neden olabileceği bildirilmiştir (5). Bizim olgumuzda ise tümörün çapı büyümesine rağmen intrauterin gelişme kısıtlılığı izlenmedi. Ancak sağ kalp yetmezliğinin erken dönem bulgularından olan triküspit regürjitasyonu 32. Gebelik haftasında tespit edildi. Sepulveda ve arkadaşlarının 11 plasental koryoanjiyoma olgusunun incelendiği çalışmalarında; üç olguda polihidroamniyos, iki olguda oligohidroamniyos, iki olguda İUGR ve



Resim 3: Plasenta ve koryoanjiomanın makroskopik görüntüsü.



Resim 4: Plasental koryoanjiomanın histopatolojik görüntüsü. Yer yer hücreden zengin, gevşek stroma içerisinde çoğunluğu kapiller yapıdan ve az sayıda arteriyol yapısında damarlardan oluşan, benign neoplazik soliter lezyon izlenmiştir (CD34 ile boyanan preparat X200 büyütme ile incelenmiştir).

bir olguda non-immun hidrops tespit ettiklerini bildirmişler. Dört (%44) olgunun 35. gebelik haftasından önce doğum yaptığını ve bir olguda amniyodrenaj gereksinimi olduğu ve bu olgunun terme ulaştığını bildirmişlerdir. Ayrıca iki intrauterine ölüm rapor etmişlerdir (2). Zanardini ve ark. üçü ikiz gebelikte olmak üzere 19 plasenta koryoanjioma olgu serisi bildirmişler. Bu 19 vakanın dördü rutin ikinci trimester taramasında saptanan plasental kitle, beşi İUGR, yedisi polihidroamniyos ve üçü ikiz gebeliğin değerlendirilmesi amacıyla refere edilmiştir. Ortalama tanı haftası 28+4 iken, ortalama doğum haftası 37+1 olarak bildirilmiştir. Olguların 18'inde komplikasyon gelişmiş olup; üçte ikisinde İUGR ve diğer komplikasyonlar nedeniyle elektif olarak doğum gerçekleştirilmiştir (5). Bizim olgumuzda 32. Gebelik haftasına kadar ultrasonografi ile tespit edebileceğimiz herhangi bir fetal komplikasyon gelişmemişken, kitlenin progresif ve hızlı büyüdüğü 32. Gebelik haftasında polihidramnios tespit edilmiş, IUGR saptanmamış, ve Doppler ultrasonografide umbilikal arterde end-diastolik akım kaybı saptanması ve fetal kalp yetmezliğinin bulgularının saptanması nedeniyle doğum kararı verilmiştir. Plasental koryoanjiomalar ve kötü gebelik sonuçlarının ilişkisi nedeniyle, prenatal dönemde yakın takip önemlidir. Herhangi bir geç komplikasyon varlığında, uygun neonatal destek ve fetal akciğer maturitesi sonrası doğum önerilmektedir. Fakat en ağır komplikas-

yonlar geç ikinci trimester döneminde olmaktadır. Bu dönemde fetal prematürite nedeniyle doğum tercih edilen bir seçenek olmamaktadır. Polihidramniosu olan olgularda amniyodrenaj ve fetal anemide intrauterin kan transfüzyonu konservatif yaklaşımda yardımcı tedavi metodu olarak kullanılmıştır (2). Yeni tedavi modalitelerinde tümörün vasküler kaynağının kesilmesi önerilmiştir. Literatürde; komplike olmamış koryoanjioma olgularında, tümör devaskülari-zasyonunu sağlamak amaçlı alkol enjeksiyonu (altı olgunun dördünde başarı sağlanmış) (2, 16, 18), endoskopik laser koagülasyon (beş olgunun ikisinde başarı sağlanmış) (4, 19) ve intertisyel laser (3 olgunun üçünde başarı) (5) prosedürlerinin başarılı sonuçları bildirilmiştir. Sonuç olarak, MSAFP yüksekliği tespit edilen olgularda plasentanın gri scala ve Doppler ultrasonografi ile muayenesi ihmal edilmemeli ve koryoanjiom açısından değerlendirilmelidir. Plasental koryoanjiom yüksek fetal ve maternal komplikasyonlar ile ilişkili olup prognozu kötüdür. Plasental koryoanjioma tanısı ilk konulduğu zaman eşlik eden bulgular olmasa da olası gelişebilecek komplikasyonlar açısından yakın ve dikkatli takip planlanmalıdır. Komplike olmayan olgularda erken dönemde devaskülari-zasyonun işlemleri aileye seçenek olarak sunulabilir. Komplike olgularda ise fetal akciğer maturasyonu takiben doğum önerilmelidir.

KAYNAKLAR

1. Benirschke K, Kaufmann P, Baergen RN. Benign tumors and chorangiosis. In *Pathology of Human Placenta* (5th ed), Benirschke K, Kaufmann P (eds). Springer: New York, 2006. pp 863–76.
2. Sepulveda W, Alcalde JL, Schnapp C, Bravo M. Perinatal outcome after prenatal diagnosis of placental chorioangioma. *Obstet Gynecol* 2003;102:1028–33.
3. Fox H, Sebire NJ. Non-trophoblastic tumors of the placenta. In *Pathology of the Placenta* (3rd edn), Fox H, Sebire N (eds). Saunders Elsevier: Philadelphia, 2007. pp 401–30.
4. Quarello E, Bernard JP, Leroy B, Ville Y. Prenatal laser treatment of a placental chorioangioma. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2005;25:299–301.
5. Zanardini C, Papageorgiou A, Bhide A, Thilaganathan B. Giant placental chorioangioma: natural history and pregnancy outcome. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2010;35:332–6.
6. Knoth M, Rygaard J, Hesseldahl H. Chorioangioma with hydramnios and intrauterine fetal death. *Acta Obstetrica et Gynaecologica Scandinavica* 1990;55:279-281.
7. Froehlich LA, Fujikura T, Fisher P. Chorioangiomas and their clinical implications. *Obstet Gynecol* 1971;37:51–59.
8. Moncusa A, D'Anna R, Corrado F, Cannata M. Large placental chorioangioma. *Acta Obstet Gynecol Scand* 2001;80:965-966.
9. Bromley B, Benacerraf BR. Solid masses on the fetal surface of the placenta: differential diagnosis and clinical outcome. *J Ultrasound Med* 1994;13:883–886.
10. Zalel Y, Weisz B, Gamzu R, Schiff E, Shalmon B, Achiron R. Chorioangiomas of the placenta: sonographic and Doppler flow characteristics. *J Ultrasound Med*. 2002;21:909-13.
11. Wallenburg HCS. Chorioangioma of the placenta. Thirteen new cases and a review of the literature from 1939 to 1970 with special reference to the clinical complications. *Obstet Gynecol Surv* 1971;26(6):411-25.)
12. Api O, Akıl A, Güray Uzun M, Can E, Kaymaz Ö, Geçer M, Turan C, Ünal O. A Pregnancy Complicated By A Giant Placental Chorioangioma: Case Report, *Türkiye Klinikleri J Gynecol Obst* 2009;19:371-5.
13. Marchetti AA. A consideration of certain types of benign tumors of the placenta. *Surg Gynecol Obstet* 1939;68:733–743.
14. Escribano D, Galindo A, Arbues J, Puente JM, De la Fuente P. Prenal management of placental chorioangioma: value of the middle cerebral artery peak systolic velocity. *Fetal Diagn Ther* 2006;21:489–493.
15. Sivaslı E, Tekşam Ö, Haliloğlu M, Güçer Ş, Orhan D, Gürgey A, Tekinalp G. Hydrops fetalis associated with chorioangioma and thrombosis of umbilical vein. *The Turkish Journal of Pediatrics* 2009; 51: 515-518
16. Nicolini U, Zuliani G, Caravelli E, Fogliani R, Poblete A, Roberts A. Alcohol injection: a new method of treating placental chorioangiomas. *Lancet* 1999;353:1674-5.
17. Wanapirak C, Tongsong T, Sirichotiyakul S, Chanprapapah P. Alcoholization: the choice of intrauterine treatment for chorioangioma. *J Obstet Gynaecol Res* 2002;28:71–5.
18. Deren O, Ozyuncu O, Onderoglu LS, Durukan T. Alcohol injection for the intrauterine treatment of chorioangioma in a pregnancy with transfusion resistant fetal anemia: a case report. *Fetal Diagn Ther* 2007;22:203–5.
19. Sepulveda W, Wong A, Herrera L, Dezerega V, Devoto JC. Endoscopic laser coagulation of feeding vessels in large placental chorioangiomas: report of three cases and review of invasive treatment options. *Prenat Diagn* 2009;29:201–6.