



Üst Göz Kapağında Nadir Bir Ptozis Sebebi: Eozinofilili Anjiolenfoid Hiperplazi

A Rare Cause of Ptosis in the Upper Eyelid: Angiolymploid Hyperplasia with Eosinophilia

Abdulkadir ALIŞ¹, Zumreta RİZVANOVIÇ², Meryem GÜLER ALIŞ³

¹Sancaktepe Şehit Prof. Dr. İlhan Varank Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göz Hastalıkları Kliniği, İstanbul, Türkiye

²Yeni Yüzyıl Üniversitesi Gaziosmanpaşa Hastanesi, Plastik ve Rekonstrüktif Cerrahi Anabilim Dalı, İstanbul, Türkiye

³SBÜ Fatih Sultan Mehmet Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göz Hastalıkları Kliniği, İstanbul, Türkiye

Yazışma Adresi

Correspondence Address

Abdulkadir ALIŞ

Şehit Prof. Dr. İlhan Varank
Sancaktepe Eğitim ve Araştırma
Hastanesi, Göz Hastalıkları Kliniği,
İstanbul, Türkiye

E-posta: gozdrkadir@gmail.com

Geliş tarihi \ Received : 16.08.2018

Kabul tarihi \ Accepted : 27.09.2018

Elektronik yayın tarihi : 14.01.2019

Online published

Cite this article as:

Bu makaleye yapılacak atıf:

Aliş A, Rizvanović Z, Güler Aliş M. Üst
göz kapağında nadir bir ptozis sebebi:
Eozinofilili anjiolenfoid hiperplazi.
Akd Tıp D 2020; 6(1):136-39.

Abdulkadir ALIŞ

ORCID ID: 0000-0003-3458-3120

Zumreta RİZVANOVIÇ

ORCID ID: 0000-0002-6860-317X

Meryem GÜLER ALIŞ

ORCID ID: 0000-0002-9754-6688

ÖZ

Amaç: Mekanik ptozise neden olan ve çok nadir görülen, patolojik tanısı Eozinofilili Anjiolenfoid Hiperplazi (EALH) ile uyumlu dört olgu sunularak tedavi yöntemlerini ve tecrübelerimizi paylaşmak.

Gereç ve Yöntemler: 2011-2017 yılları arasında üst göz kapağında ptozis yapan kitle nedeniyle opere edilen 4 hasta çalışmaya alındı. Hastaların tümünde eksizyonel biyopsi ile kitle eksizyonu yapıldı.

Bulgular: Operasyon sırasında ve sonrasında komplikasyon izlenmedi. Cerrahi sonrasında tüm hastalarda ptoziste düzelme görüldü. Patolojik tanı hepsinde EALH olarak rapor edildi.

Sonuç: Üst göz kapağında mekanik ptozise neden olan olgularda EALH ayırıcı tanıda akılda bulundurulmalıdır.

Anahtar Sözcükler: Eozinofilili anjiolenfoid hiperplazi, Ptozis, Kimura hastalığı

ABSTRACT

Objective: To present our treatment methods and experiences by presenting four rare cases of mechanical ptosis with pathological diagnosis consistent with angiolymploid hyperplasia with Eosinophilia (EALH).

Material and Methods: Between 2011 and 2017, 4 patients who were operated on due to an upper eyelid mass causing ptosis were included in the study. The mass excision was performed by excisional biopsy in all patients.

Results: No complication was observed during and after the operation. After the surgery the ptosis recovered in all patients ...Pathological diagnosis was reported as EALH in all.

Conclusion: EALH should be kept in mind in the differential diagnosis of patients with mechanical ptosis of the upper eyelid

Key Words: Angiolymploid Hyperplasia with Eosinophilia, Ptosis, Kimura disease

GİRİŞ

Mekanik ptozis; üst göz kapağını mekanik olarak ağırlaştıran hastalıklar ya da hareketlerini kısıtlayan skatrisyel olayların neden olduğu ptozislerdir. Konjenital olarak hemanjiom, nörofibrom, amiloidoz ve lenfoma, edinsel olarak da kapaktaki tümörler ya da dermatoşalazis mekanik olarak ptozise neden olur. Eozinofilili Anjiolenfoid Hiperplazi (EALH)'nin göz kapağı tutulumu çok nadirdir fakat ptozis yapan sebeplerden biri olarak da akılda tutulması gerekir. Bu çalışmada mekanik ptozise neden olan ve çok nadir görülen, patolojik tanısı EALH ile uyumlu olguları sunarak tedavi yöntemlerini ve tecrübelerimizi paylaştık.

GEREÇ ve YÖNTEMLER

EALH tanısı ile takip edilen 1'i erkek (%25), 3'ü kadın (%75) 4 hasta çalışmaya alındı. Üç hastanın sol üst kapağında, 1 hastanın sağ üst kapağında ptozise neden olan kitlesel lezyonu

vardı. Hastaların yaşları 21-43 yaş arasında değişmekteydi ve yaş ortalaması 33 yıl idi. Hastalığın ortalama süresi, 14 ay (12 ay -18 ay) idi. Kitle boyutları ortalaması 2.5 ± 1.7 cm idi. Tüm hastalarda tam kan sayımında eozinofili değerleri normal sınırlar içindeydi. Hastaların hepsine yapılacak cerrahi girişimler ve olası komplikasyonları anlatılarak cerrahi onamları alındı. Hastaların tümünde operasyonlar lokal anestezi altında gerçekleştirildi. Tüm operasyonlarda supratarsal kıvrımdan insizyon yapıp kitleye ulaşıldı. Kitle, etrafındaki dokulardan izole edilip çıkarıldı.

BULGULAR

Operasyon sırasında ve sonrasında komplikasyon izlenmedi. Hastalar operasyon sonrası ortalama 8 ay takip edildi. Postoperatif nüks saptanmadı.

OLGU

Yirmibir yaşında erkek hasta, 1 yıldır sağ üst göz kapağında ağrısız şişlik ile kliniğimize başvurdu (Şekil 1). Öncesinde travma veya enfeksiyon öyküsü yoktu. Hastanın fizik muayenesinde bölgesel lenfadenopati veya eşlik eden başka bir patolojik bulgu saptanmadı. Laboratuvar incelemelerinde tam kan sayımı, protrombin zamanı, aktive parsiyel tromboplastin zamanı, anti-HIV, anti-HCV, anti-HbsAg normal sınırlarda veya negatifti. Periferik yaymada eozinofil oranı %4,1 olarak normal sınırlardaydı. Hastanın bilateral servikal doppler USG incelemesinde patolojik bulguya rastlanmadı. Kranial MR görüntüleme ise sağ üst göz kapağında sınırları düzgün 2×2 cm boyutlarında lezyon görüldü (Şekil 2). Hastaya cerrahi yaklaşımda; supratarsal kıvrımdan insizyon yapıp kitleye ulaşıldı ve kitle etraf dokulardan izole edilip çıkarıldı. Histopatoloji sonucu EALH geldi. Operasyon sonrası takiplerinde nüks saptanmadı ve pitozisin düzeldiği görüldü (Şekil 3).

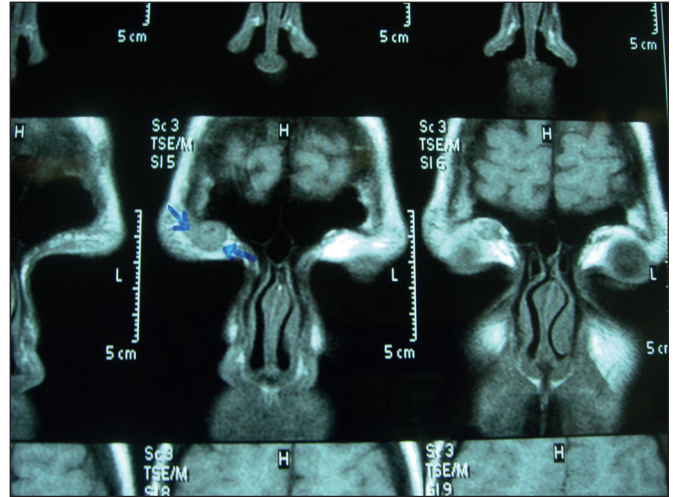
TARTIŞMA

EALH, ilk olarak Wels ve Whimster tarafından 1969 yılında tarif edilen, nadir rastlanan, benign, vazoproliferatif, idiopatik bir hastalıktır (1). O dönemde Kimura hastalığının (KH) geç evresi olarak düşünülmesine rağmen günümüzde bu 2 hastalık birbirinden ayrı 2 antite olarak kabul edilmektedir (2).

EALH klinik olarak sıklıkla 20'li 40'lı yaşlardaki kadınları etkileyen %85 oranında baş ve boyun bölgesinde özellikle de kulak çevresindeki (retroauriküler) lezyonlarla ortaya çıkmaktadır. Tipik olarak retroauriküler bölgede yerleşen, yumuşak yüzeyle kırmızı-kahverengi papül ve nodüller şeklinde kendini gösterir. Daha az sıklıkla da gövde, kol ve bacaklar, oral mukoza, genital bölgede görülür (3,4). Yaygın tutulumları ve deri dışı tutulumu nadirdir. Derin yumuşak dokuda, tükürük bezleri, orbit, kemik, lenf nodları, kolon, kalp, akciğerde yerleşim rapor edilmiştir.



Şekil 1: Sağ üst göz kapağında yerleşen, pitozise sebep olan EALH.



Şekil 2: Kitlenin MR görüntüsü.



Şekil 3: Operasyon sonrası 6. ay görünümü ve pitozisin düzeldiği görülmekte.

Olguların %10-20'sinde kanda eozinofili gözlenmiştir (5,6). Bizim serimizde periferik eozinofili gözlenmemiştir.

Her ne kadar Kimura hastalığı ve EALH önceleri aynı hastalık gibi değerlendirilse de, daha çok Asyalılarda görülen, eozinofili ve özellikle de boyunda yaygın lenfadenopatilerle seyreden, nadiren deri tutulumu gösteren reaktif lenfositik bir durum olan Kimura hastalığı EALH'den tamamen farklıdır (7). Biz hastalarımızda patolojik lenfadenopatinin olmaması ve eozinofili görülmemesi, lezyonların deride yerleşmesi nedeniyle klinik olarak Kimura hastalığı düşünmedik. Histopatolojik olarak bu 2 hastalığın ortak bulguları vardır ancak bazı farklılıklar da bulunur. Kimura hastalığında iyi şekillenmiş lenfoid folliküller ve belirgin eozinofilik infiltrasyon bulunur ancak epiteloid ya da histiositoid endotelial değişiklikler EALH'da görüldüğü gibi belirgin değildir. EALH epiteloid endotelial hücre değişiklikleri ile karakterizedir ve lenfoid folliküllerin varlığı nadirdir (8). EAH'nin karakteristik histopatolojik görünümünde kapiller kan damarlarında proliferasyon, damara doğru büyümüş endotelial hücreler ve perivasküler eozinofil, nötrofil, histiyosit ve mast hücrelerini içerebilen infiltrasyon gözlenmektedir (9).

Bazı yazarlar EALH'nin endotelial hücrelerden gelişen bir neoplazm olduğunu düşünürken, bazıları bunun karmaşık immünolojik mekanizmalar sonucu gelişen enflamatuvar vasküler reaksiyona bağlı olduğunu düşünmüşlerdir (10). Böcek ısırığı, travma ve enfeksiyon gibi çevresel faktörleri suçlayan birçok hipotez de yayınlanmıştır. Bazı yazarlar ise olguların %42'sinde görülen arteriovenöz şantın etiyopatogenezi başlıca rol aldığını savunmuşlardır (11). T lenfositlerinin baskın olması ve TCR reseptörlerinin yeniden düzenlenmesi bazı yazarların EALH'ın değişik faktörler sonucu gelişen düşük dereceli neoplastik bir hastalık olduğu tezini ortaya atmışlardır (12).

Literatürde henüz bildirilmiş altın standart bir tedavi yöntemi bulunmamaktadır (13,14). İntralezyonel tedavi

(sklerozan ajanlar veya steroid), interferon alfa-2a, pentoksilin kullanımı, cerrahi eksizyon, radyoterapi, lazer tedavileri denenilen tedavi yöntemleri arasındadır (15). Azari ve ark. orbital tutulumla seyreden 5 olguluk çalışmalarında; pitozis ve kapak ödemi olan bir olgularında eksizyonel biyopsi ile pitozisin tümüyle düzeldiğini ve nüks saptanmadığını bildirmişlerdir. Fakat kapak tutulumu olmayıp derin orbitaya yayılan EALH'li diğer olgularda görme keskinliğinde azalma, diplopi, propitosiz görüldüğünden, bu olgularda eksizyonel biyopsiyle dokunun inkomplet çıkarılmasının nükslere neden olabileceği öngörülerek oral ve intralezyoner steroid, radyasyon, insizyonel biyopsi tedavi modalitelerini uygulamışlardır. İnsizyonel biyopsi sonrasında spontan regresyon da görülebileceğini bildirmişlerdir (16). Adler ve ark. 416 olguluk çalışmalarında en etkili yöntemin cerrahi eksizyon olduğunu raporlamışlardır (17). Biz de üst göz kapağını tutan ve mekanik pitozise sebep olan olgularımızın tümüne eksizyonel biyopsi uyguladık ve 8 aylık takiplerinde nüks saptamadık. Bu nedenle mekanik pitozise neden olan kapak kitlelerinde EALH de ayırıcı tanıda akılda tutulmalıdır. Böyle olgularda, cerrahi tam eksizyonları zor olabilecek derin orbital tutulumla seyreden kitlelerin aksine, basit kapak tutulumlarının tanı ve tedavisinde eksizyonel biyopsi uygulanmasının daha kolay kesin bir seçenek olduğunu düşünüyoruz.

SONUÇ

Sonuç olarak, nonspesifik semptomlar gösteren EALH, çok nadir olsa da göz kapağında mekanik pitozise de neden olabilmektedir. Kesin tanısı sadece histopatoloji ile konulabilen bir hastalıktır. Bu hastalıkla ilgili birçok tedavi modalitesi tanımlanmışsa da nüksler açısından eksizyonel biyopsinin hem hastalığın tanısında hem de tedavisinde daha etkili bir yöntem olduğunu düşünmekteyiz.

Not: Hasta fotoğraflarının sunumu için izin alınmıştır.

KAYNAKLAR

1. Requena L, Sanguenza OP. Cutaneous vascular proliferation part 2. Hyperplasias and benign neoplasms. J Am Acad Dermatol 1997; 37:887-920.
2. Bayır Ö, Karagöz T, Tatar EÇ, Özdek A, Han Ü, Saylam G, Korkmaz MH. Atypical presentation in Kimura's disease. Kulak Burun Boğaz İhtis Derg 2015; 25(1):46-50.
3. El Sayed F, Dhaybi R, Ammouy A, Chababi M. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: Efficacy of isotretinoin? Head Face Med 2006; 2:32-6.

4. Endo M, Shibata M, Iwamoto I, Suzuki H, Hayakawa Met. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Eur J Dermatol 1998; 8:175-7.
5. Shankar S, Russell-Jones R. Co-existence of lichen amyloidosis and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Clin Exp Dermatol 2004; 29:363-5.
6. Miller CJ, Ioffreda MD, Ammirati CT. Mohs micrographic surgery for angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Dermatol Surg 2004; 30:1169- 73.

7. Kutzner H. Vascular tumors. In: Braun-Falco O, Burgdorf WHC, Plewig G, Wolff HH, Landthaler M, eds. Braun Falco's Dermatology. 3th ed. Berlin: Springer Medizin Verlag Heidelberg 2009: 527-39.
8. Martorell M, Pérez-Vallés A, Gozalbo F, Garcia-Garcia JA, Gutierrez J, Gaona J. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia involving the cubital nerve. *Acta Neuropathol* 2004; 107(4):372-6.
9. Uyar B, Karaarslan S. Widespread angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Turk J Dermatol* 2013; 7:161-3.
10. Olsen TG, Helwig EB. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *J Am Acad Dermatol* 1985; 12:781-96.
11. Chun SI, Ji HG. Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: Clinical and histopathologic differences. *J Am Acad Dermatol* 1992; 27:954-8.
12. Zaraa I, Mlika M, Chouk S, Chelly I, Mokni M, Zitouna M, Osman AB. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: A study of 7 cases. *Dermatol Online J* 2011; 17(2):1.
13. Wells GC, Whimster IW. Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Br J Dermatol* 1969; 81:1-14.
14. Esteves P, Barbalho M, Lima T, Quintella L, Niemeyer-Corbellini JP, Ramos-E-Silva M. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: A case report. *Case Rep Dermatol* 2015; 7(2):113-6.
15. Ozkan BT, Eroglu CN, Cigerim L, Gunhan O. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia in the angle region of the mandible. *J Oral Maxillofac Pathol* 2015; 19:108.
16. Azari AA, Kanavi MR, Lucarelli M, Lee V, Lundin AM, Potter HD, Albert DM. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of the orbit and ocular adnexa: Report of 5 cases. *JAMA Ophthalmol* 2014; 132(5):633-6.
17. Adler BL, Krausz AE, Minuti A, Silverberg JI, Lev-Tov H. Epidemiology and treatment of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (ALHE): A systematic review. *J Am Acad Dermatol* 2016; 74(3):506-12.