

Tongue Solitary Angiokeratoma

Dilde Soliter Anjiokeratom

Özlem Ceren Günizi^{1*}, Hüseyin Günizi²

1.Alanya Alaaddin Keykubat Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji A.D. Alanya, Türkiye

2.ALKÜ, Alanya Eğitim ve Araştırma Hastanesi, KBB Kliniği, Alanya, Türkiye

ABSTRACT

Angiokeratoma is a capillary vascular malformation, characterized clinically by solitary of multiple papules or plaques. From a clinical point of view, it can show either a generalized and diffuse form of presentation, or all localized one. Clinically, five varieties are generally recognized: 1. solitary papular angiokeratomas, 2. scrotal or vulvar angiokeratomas, 3. multiple papular and plaque like angiokeratoma circumscriptum, 4. bilateral lesions on the dorsum of toes and fingers, 5. generalized systemic type angiokeratoma corporis diffusum. Isolated mucosal angiokeratoma of the tongue is extremely rare. We report an unusual case of solitary angiokeratoma on the tongue.

Keywords: Tongue, Angiokeratoma, Solitary

ÖZET

Anjiokeratom, klinik olarak soliter papül veya plaklarla karakterize kapiller vasküler bir malformasyondur. Klinik olarak tek bir lokalize lezyon veya jeneralize diffüz form olarak karşımıza çıkabilir. Klinik olarak 5 farklı tip tanımlanmıştır; 1.Soliter papüler anjiokeratom, 2.Skrotal veya vulvar anjiokeratom, 3.Multiple papül ve plaklarla karakterize anjiokeratoma sirkumskriptum, 4.Bilateral el ve ayak parmaklarında lezyon ile karakterize form, 5. Sistemik jeneralize diffüz anjiokeratom. İzole mukozal anjiokeratom oldukça nadir görülür. Burada dil üzerinde soliter anjiokeratom saptadığımız nadir bir olgu sunduk.

Anahtar kelimeler: Dil, Anjiokeratom, Soliter.

Geliş Tarihi 18.05.2017/ Kabul Tarihi 04.08.2017 / Yayınlanma Tarihi 15.12.2017

*Sorumlu Yazar: Hüseyin Günizi, ALKÜ, Alanya Eğitim ve Araştırma Hastanesi, KBB Kliniği, Alanya, Türkiye, Tel: +90 505 935 66 48, Fax: +90 242 513 48 40 E-mail: drgunizi@gmail.com

Anjiokeratom kapiller vasküler bir malformasyondur. Klinik olarak tek bir lokalize lezyon veya jeneralize diffüz form olarak saptanabilir. Genel olarak vakaların çoğu asemptomatik olan deri lezyonları şeklinde görülür. Lezyonların görülme şekline göre 5 farklı tip tanımlanmıştır; 1. Soliter papüler anjiokeratom, 2. skrotal veya vulvar anjiokeratom, 3. multiple papül ve plaklarla karakterize anjiokeratoma sirkumskriptum, 4. bilateral el ve ayak parmaklarında lezyon ile karakterize form, 5. Sistemik jeneralize diffüz anjiokeratom. [1] İzole mukozal anjiokeratom oldukça nadirdir.

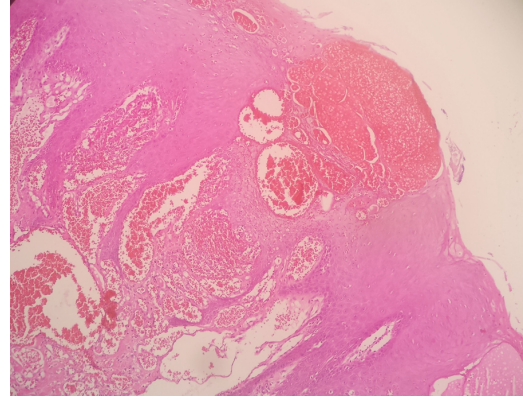
OLGU SUNUMU

Dokuz yaşında erkek hasta dil üzerinde, yavaş büyüyen renkli bir şişlik şikayeti ile başvurdu. Fizik muayenede dil dorsal yüzeyinde ortalama 10 mm çapında, küçük kırmızı bir lezyon saptandı. Hasta lezyonun son 1 yıldır farkettiğini bildirdi. Hastanın hikayesinde fiziksel veya ısı travması yoktu ve lezyondan kaynaklanan bir kanama bildirilmedi. Lezyon şişlik dışında başka bir semptom veya fonksiyonel kayba neden olmamıştı. Hastada sistemik veya metabolik bir hastalık saptanmadı. Ağız mukozasında, nazofarenks ve cilt muayenesinde herhangi bir renk değişikliği veya lezyon saptanmadı. Dil üzerindeki lezyon lokal anestezi ile total olarak eksize edildi.

Biyopsi materyali 24 saat tamponlu formaldehit ile fiks edildikten sonra parafine edilerek kesitler alındı ve Hematoksilin-Eozin ile boyandı. Kesitlerin incelenmesinde değişen kalınlıkta çok katlı yassı epitel mevcut olup, epidermal retelerin bir kısmı uzamış görünümde bazı alanlarda ise reteler geniş ve birleşmiş şekilde izlendi. Epidermis altındaki bağ dokuda çok sayıda geniş dilate endotelle döşeli içerisi eritrosit ile dolu damar yapıları izlendi. Endotelyal hücrelerde şişlik veya vakuolizasyon görülmedi. Kan damarları ve reteler etrafında kronik inflamatuvar hücre infiltrasyonu mevcuttu (Resim 1). Olgu Anjiokeratom olarak rapor edildi.

TARTIŞMA

Anjiokeratomda lezyonlar papiller dermisteki kapiller damar malformasyonu ile karakterizedir. Anjiokeratoma Mibelli tarafından patolojik bir antite olarak tanımlanmıştır ancak soliter anjiokeratom ilk kez 1967'de Imperial and Helwig tarafından tanımlanmıştır[2]. Soliter anjiokeratom nadir görülen benign mukokutanöz lezyonlardır.



Resim 1: Epitel içerisinde dilate damar yapılarıyla karakterize Anjiokeratom izlenmektedir. (H&E X100)

Anjiokeratom klinik olarak jeneralize ve diffüz form şeklinde görülebildiği gibi lokalize lezyonlar şeklinde de izlenebilir. Klinik olarak 5 farklı tip tanımlanmıştır; 1. Soliter papüler anjiokeratom, 2. skrotal veya vulvar anjiokeratom, 3. multiple papül ve plaklarla karakterize anjiokeratoma sirkumskriptum, 4. Bilateral el ve ayak parmaklarında lezyon ile karakterize form, 5. Sistemik jeneralize diffüz anjiokeratom[1].

Klinik prezentasyon ve patogenez 5 klinik formda farklı olabirse de histopatolojik bulgular tüm formlarda benzerdir. Anjiokeratom histolojik olarak hiperkeratoz, parakeratoz, epidermiste akantozis ve epitel içerisinde dilate eritrosit yada fibrin trombus içeren damar yapılarıyla karakterize olup, damar yapılarının etrafı retelerle çevrilidir[3].

Anjiokeratom genel olarak deri lezyonları şeklinde görülür. Oral kavitedeki mukozal anjiokeratom nadir görülen sendromik hastalıklarla bağlantılıdır. Sıklıkla alta yatan sistemik metabolik bir hastalık olan Fabry sendromu veya fukoizidosis ile birlikte görülmektedir. Sistemik hastalıklarla birlikteliğinde görülen lezyonlar genellikle multipl şekildedir. Lezyonlar genellikle kalça, uyluk, göbek, alt karın, skrotum, glans penis üzerinde ve nadiren oral mukozada bulunur[4]. Oral mukozaya tutulumu anjiokeratomun sistemik formlarında sıklıkla izlenir. Ancak lokalize anjiokeratomda oral mukozaya tutulumu oldukça nadirdir. Oral kavitede en sık tutulan bölge dilin ön dorsal yüzeyidir. Literatürde oral mukozaya ile ilgili tonsiller pili üzerinde lezyon saptanan bir vaka vardır[5]. Bizim vakamızda lezyon dil üzerindeydi. Bunun dışında ek lezyon, herhangi bir sistemik veya metabolik hastalığı yoktu. Cinsiyet olarak literatürde daha sık kadınlarda bildirilirken bizim vakamız erkekti[6].

Anjiokeratomda lezyonların patogenizi net değildir.

Lokalize form gelişiminde akut veya kronik travma, yüksek venöz basınç, vasküler malformasyon etkili olduğu düşünülmektedir[7]. Anjiokeratomdaki primer patoloji papiller dermis içerisindeki vasküler ektazi ve buna sekonder olarak bazal membranda ve epidermiste reaktif değişikliklerdir. Anjiokeratomda vasküler malformasyon yüzeyinde artmış bir proliferasyon mevcuttur. Lezyonlar kolaylıkla melonositik nevus, verruca vulgaris, hemanjiom, kapiller anevrizma veya spitz nevüs ile karışabilir. Oral kavitedeki lezyonlar sıklıkla görünüm olarak papillom veya hemanjioma benzer şekilde ortaya çıkarlar. Bazı vakalar malign melanomu taklit edebilir ancak histopatolojik bakı ile kesin tanı elde edilir[8].

Vakaların çoğunluğu asemptomatiktir. Ancak bazı lezyonlar travmaya maruziyet sonucu kanamaya veya kozmetik problemlere neden olur[9]. Bizim vakamızda klinik prezentasyon dil ön yüzeyinde kanamalı tek ekzofitik lezyon şeklindeydi. Fizik muayenede hemanjiom ile klinik benzerliği mevcuttu. Lezyon eksizyonel biyopsi ile çıkarıldı.

Literatürde anjiokeratom için tedavide total cerrahi eksizyon yeterli olarak bildirilmiştir. Ayrıca ek olarak diatermi ve kriyoterapi de diğer tedavi yöntemleridir. Multipl lezyonlar için laser ablasyon kullanılabilir[10]. Genel olarak tedavi sonrası rekürrens belirtilmemiştir ancak literatürde tek vakada bildirilmiştir[11]. Bizim

vakamızda 1 yıllık takipte herhangi bir rekürrens saptanmadı.

Çıkar Çatışması: Yazarlar bu yazının hazırlanması ve yayınlanması aşamasında herhangi bir çıkar çatışması olmadığını beyan etmişlerdir.

Finansman: Yazarlar bu yazının araştırma ve yazarlık sürecinde herhangi bir finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

KAYNAKLAR

1. Leung CS, Jordan RCK. Solitary angiokeratoma of the oral cavity. Oral Surg Oral Med Oral Path. Oral Radiol Endod. 1997;84:51-3.
2. Imperial R, Helwig E B. Angiokeratoma. A clinicopathological study. Archives of Dermatology. 1967;95(2):166-75.
3. Sion Vardy N, Manor E, Puterman M, Bodner L. Solitary angiokeratoma of the tongue. Med Oral Pathol Oral Cir Bucal. 2008;13:12-4.
4. Farooq U, Mirzabeigi M, Vincek V. Solitary angiokeratoma of the tongue. European Journal of Pediatric Dermatology. 2005;15(4):233-6.
5. Fernandez Flores A, Sanroman J. Solitary angiokeratoma of the tonsillar pillar of the oral cavity. Romanian Journal of Morphology and Embryology. 2008;50(1):115-7.
6. Fernandez Acenero M J, Biel J R, Renedo G. Solitary angiokeratoma of the tongue in adults Romanian Journal of Morphology and Embryology. 2010;51(4):771-3.
7. Siponen M, Penna T, Apaja Sarkkinen M, Palatsi R, Salo T. Solitary angiokeratoma of the tongue. J Oral Pathol Med. 2006;35(4):252-3.
8. Kar H K, Gupta L. A case report of angiokeratoma circumscriptum of the tongue, response with carbon dioxide and pulsed dye laser. Journal of Cutaneous and Aesthetic Surgery. 2011;4:205-7.
9. Schiller P I, Iltin, P.H. Angiokeratomas: an update. Dermatology.1996;193(4):275-82.
10. Del Pozo J, Fonseca E. Angiokeratoma circumscriptum naeviforme: successful treatment with carbon-dioxide laser vaporization. Dermatol Surg. 2005;3:232-6.
11. Nain M, Agarwal S, Singh G, Devenga R. Congenital solitary angiokeratoma of tongue: a rare case report. International Journal of Oral and Maxillofacial Pathology. 2012;3(2):72-5.

How to cite this article/Bu makaleye atıf için:

Günizi ÖC, Günizi H. Tongue Solitary Angiokeratoma. Acta Med. Alanya 2017;1(3): 52-54 [Turkish]