

ÖZGÜN ARAŞTIRMA

Endoskopik Juvenil Nazofarengeal Anjiofibrom Cerrahisi - Uludağ KBB Sonuçları

Fikret KASAPÖĞLU, Osman DURGUT, Ersin ŞEN, Ö. Afşın ÖZMEN,
Aydın CEYHAN, Hakan COŞKUN, Oğuz BASUT, Selçuk ONART

Uludağ Üniversitesi, Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı, Bursa.

ÖZET

Bu çalışmanın amacı Juvenil Nazofarengeal Anjiofibrom (JNA)'un cerrahisinde endoskopik yaklaşımla tedavi edilen olgu serisinin sonuçlarını ortaya koymaktır. Geriye dönük olarak 1995 ile 2010 yılları arasında ve Uludağ Üniversitesi Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı'nda JNA nedeniyle tedavi edilen toplam 18 hasta incelendi. Nisan 2007 – Mart 2010 tarihleri arasında endoskopik olarak rezeksiyon uygulanan 6 hasta değerlendirmeye alındı. Tanı, fizik muayene bulguları ve radyolojik bulgular ile konuldu. Tüm hastalara cerrahiden 24 saat öncesinde selektif anjio-embolizasyon uygulandı. Hastaların yaşları 14 ile 21 arasında değişmekte olup tümü erkekti. Hastalar en sık burun tıkanıklığı (6/6 %100) ve burun kanaması (5/6 %83) semptomlarıyla kliniğimize başvurdu. Beş hastada endoskopik yaklaşımla eksizyon uygulandı. Bir hastada endoskopik ve transmaksiller yaklaşımlar kombine edildi. Bir hastada yineleme görüldü. Radyolojik olarak saptanan yinelemede büyüme ve semptom olmadığı için hasta takip edilmektedir. Postoperatif dönemde hiçbir hastada cerrahiye veya embolizasyona bağlı komplikasyon gelişmedi. JNA tedavisinde endoskopik yaklaşım, preoperatif embolizasyon uygulanması halinde güvenle uygulanabilecek bir yöntemdir. Endoskopik yaklaşım hasta morbiditesini önemli ölçüde azalttığından öncelikle seçilecek tedavi yöntemi olmalıdır.

Anahtar Sözcükler: Juvenil nazofarengeal anjiofibrom. Endoskopi. Preoperatif embolizasyon.

Endoscopic Juvenile Nasopharyngeal Angiofibroma Surgery – Uludag ENT Results

ABSTRACT

The aim of this study is to evaluate the outcomes of patients with JNA who underwent endoscopic approach surgery. 18 patients who were treated for JNA between 1995 and 2010 at Uludag University (ENT Department) were retrospectively analyzed. Between April 2007 and March 2010, 6 of these patients who underwent endoscopic resection, were evaluated. Diagnosis of these patients was set by the physical examination and radiological findings. All patients underwent selective angiography-embolization 24 hours prior the surgery. All patients were male and their ages varies between 14 to 21. The major complaints of the patients were nasal obstruction (6/6, 100%) and epistaxis (5/6, 83%). 5 patients underwent endoscopic approach only to remove the tumor. In only one patient a combination of endoscopic and transmaxillary approach was performed. After primary surgery recurrence was noticed in one patient. No further management was required for that patient because there are no radiologically progressive growth and any symptoms. In the postoperative period, none of the patients had any complications related to surgery or embolism. The endoscopic approach in JNA treatment is a safe method if the preoperative embolization is performed. Since the endoscopic approach significantly reduces the morbidity of patients, this treatment should be preferred as first choice.

Key Words: Juvenile nasopharyngeal angiofibroma. Endoscopy. Pre-operative embolization.

Neredeyse hemen her zaman erkek adölesanlara özgü olarak kabul edilen Juvenil Nazofarengeal Anjiofibrom (JNA) histolojik olarak benign, lokal agresif, kapsülsüz, damar kökenli bir neoplazidir.

Nazofarenksin en sık benign tümörü olsada tüm baş boyun tümörlerinin %0,05'inden daha azını oluşturmaktadır¹. Bu tümör spesifik olarak; palatin kemiğin trifurkasyonu, vomerin horizontal alası ve pterigoid çıkıntının kökü tarafından oluşturulan sfenopalatin foramenin superior kenarından köken alır².

JNA'lar tipik olarak yavaş büyüyen ama lokal invaziv, histolojik olarak benign olduğu halde abondan kanama veya intrakraniyal uzanımına yol açtığı için yaşamı tehdit edici tümörlerdir. Tümörün doğal seyri sfenopalatin foramen civarında kaynaklandığı yerden anteriora burun boşluğuna doğru uzanması, süperiora sfenoid sinüs tabanını yukarıya doğru düzleştirilmesi ve

Geliş Tarihi: 15.12.2010
Kabul Tarihi: 17.03.2011

Dr. Fikret KASAPÖĞLU
Uludağ Üniversitesi,
Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı,
Bursa
Tel: 0224 295 26 21
e-posta: fkasapoglu@uludag.edu.tr

zamanla bu sinüsü doldurması, pterigopalatin fossaya uzanarak buradan anteriora maksiler sinüse doğru uzanması ve yine nadiren buradan infratemporal fossa ve yanağa doğru uzanmasıdır. İntrakraniyal uzanım tüm vakaların %10-36'sında görülür. İntrakraniyal en sık invazyon yaptığı bölgeler pitüiter, anterior ve orta kraniyal fossalardır³. Rekürens sıklıkla (%30-46) görülebilmektedir⁴.

Burun tıkanıklığı ve tekrarlayan tek taraflı burun kanamaları en sık görülen başvuru şikayetidir⁵. Ayrıca, yüzde şişlik, proptozis, görme ve duyma bozuklukları, dakriosistit, rinolali, sert ve yumuşak damakta bozukluk, koku almada azalma, kraniyal nöropati ve yoğun kanamalar da görülebilmektedir^{5,6}.

Nazofarenks anjiofibromlarının tedavisinde cerrahi, eksternal radyoterapi, kriyoterapi, elektrokoagülasyon, interstisyel brakiterapi, embolizasyon, hormon terapisi ve kemoterapi kullanılmıştır. Günümüzde cerrahi ve RT en etkili tedavi yöntemleri olarak kullanılmakta, diğer yöntemler ise etkinliğinin yeterli olmaması ve yan etkilerinin fazla olması nedeniyle tercih edilmemektedir⁷. Radyoterapi cerrahi tedavi edilemeyen veya vital oluşumlara yakınlığı nedeniyle cerrahi olarak tam çıkarılamayan olgularda tercih edilmektedir.

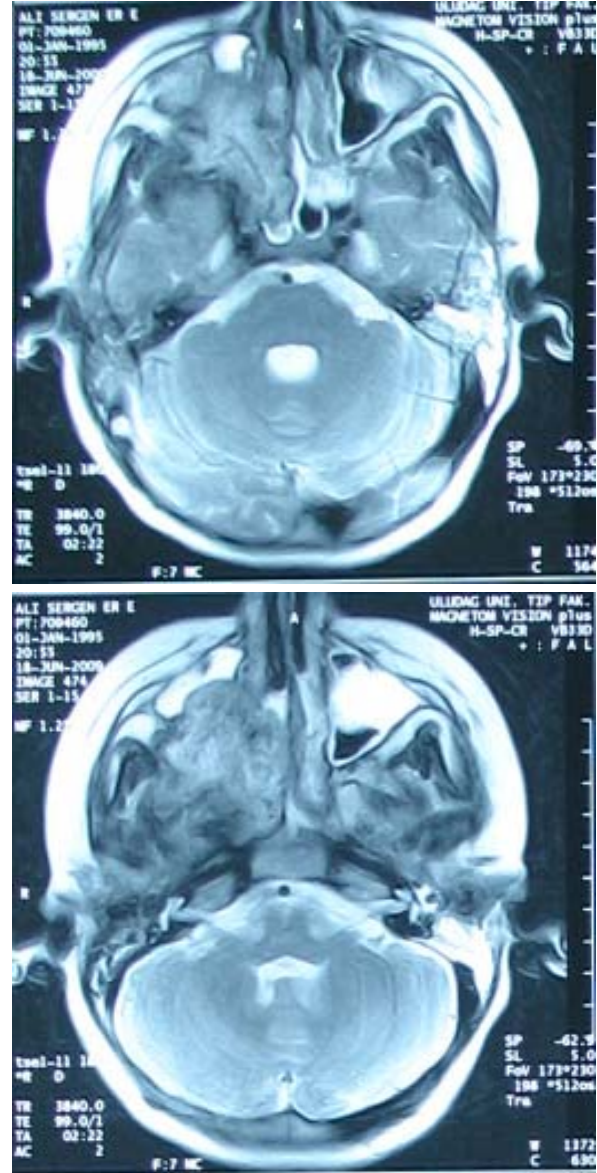
Genel olarak birçok açık cerrahi teknik JNA tedavisinde kullanılmaktadır. Son yıllarda endoskopik cerrahide ve ekipmalardaki gelişmeler sayesinde endoskopik transnazal yaklaşım, açık cerrahinin iyi bir alternatifi olmuştur, hatta bazı kliniklerde rutin olarak uygulanan yöntem olmuştur^{6-8,12-21}.

Bu çalışmanın amacı Juvenil Nazofarengeal Anjiofibromun (JNA) cerrahisinde endoskopik yaklaşımımızı ortaya koymaktır.

Hastalar ve Yöntem

Geriye dönük olarak 1995 ile 2010 yılları arasında Uludağ Üniversitesi Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı'nda JNA nedeniyle tedavi edilen toplam 18 hasta incelendi. Nisan 2007 - Mart 2010 tarihleri arasında endoskopik olarak rezeksiyon uygulanan 6 hasta değerlendirmeye alındı. Bu tarihler arasında, anjiyografi ve embolizasyon uygulanmayan sağ göz kapaklarında gelişen ödem nedeniyle endoskopik olarak rezeksiyonu tamamlanamayan ve açık cerrahi uygulanan bir hastamız çalışma dışı bırakılmıştır. Hastaların yaşları 14 ile 21 (ortalama 17,6±3,06) arasındadır. Çalışmaya alınan hastaların tümü erkekti (Tablo I).

Preoperatif tanı, hikaye, nazal endoskopik muayene ve radyolojik görüntüleme yöntemleriyle konuldu. Postoperatif dönemde histopatolojik incelemelerle doğrulandı. Bir hastada tümörün atipik görünümü nedeniyle preoperatif dönemde biyopsi alındı. Tümör lokalizasyonu ve yayılımı görüntüleme yöntemleriyle (bilgisayarlı tomografi ve manyetik rezonans) tespit edildi ve operasyon sınırları belirlendi (Şekil 1).



Şekil 1:
4 numaralı hastanın preoperatif T2 MR'da pterigopalatin fossa uzanımı olan kitle görüntüsü

Tümörler Andrew (modified Fisch) evreleme sistemi⁶ göre sınıflandırıldı. Çalışma kapsamındaki hastaların hepsine preoperatif anjiyografi ve embolizasyon uygulandı (Şekil 2).

Bulgular

Hastalar en sık burun tıkanıklığı (6/6) ve burun kanaması (5/6) semptomlarıyla kliniğimize başvurdu. Hastaların yakınmalarının süreleri ortalama 14,1 aydı (1-36 ay).

Hastalardaki tümörler modified Fisch Evrelendirme Sistemine göre; 3 hasta evre 2, 2 hasta evre 3A ve 1 hasta da evre 1 olarak saptandı (Tablo I).

Juvenil Nazofarengeal Anjiofibrom Cerrahisi

Hastaların tümüne preoperatif endoskopi ve bilgisayar tomografi görüntüleme yapıldı. 5 hastaya aynı zamanda manyetik rezonans görüntüleme yapıldı.



Şekil 2:

Beş numaralı hastanın endoskopik rezeksiyon öncesi kitlenin kanlanması ve embolizasyon sonrası kanlanmanın azalmasını gösteren anjiyografik inceleme.

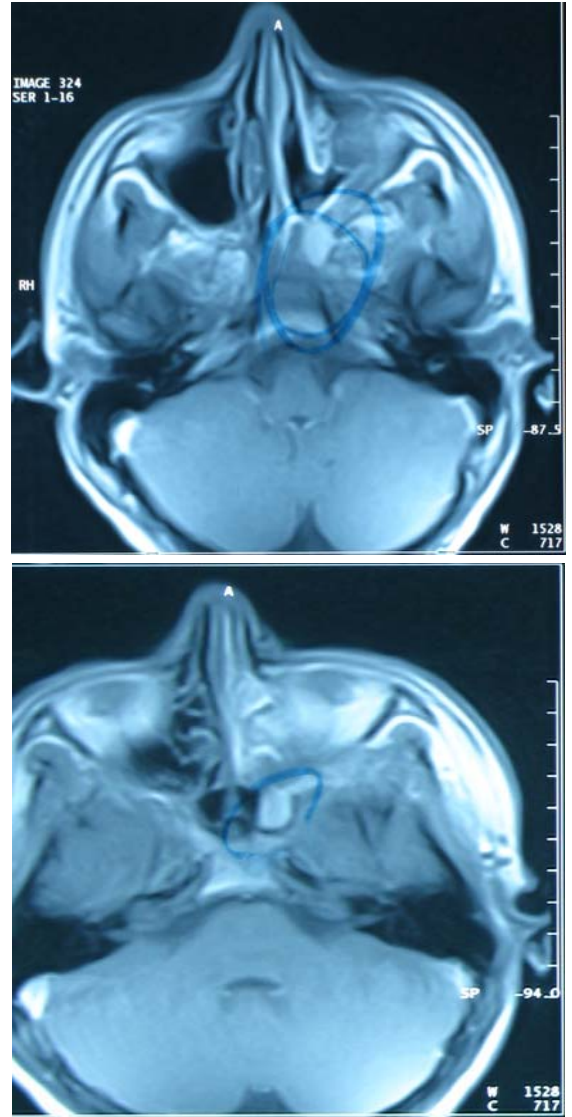
Operasyon sırasında sadece 3 hastaya (3/6) kan transfüzyonu ihtiyacı doğdu ve 2 ünite eritrosit süspansiyonu transfüzyonu yapıldı (Tablo I).

Preoperatif embolizasyon yapılmayan sağ göz kapaklarında gelişen ödem nedeniyle açık cerrahiye geçilen hastada, operasyon sırasında 4 ünite kan transfüzyonu yapıldı. Göz hekimleri tarafından değerlendirilen hastada sağ göz kapaklarında cilt altı amfizemi saptandı. Glob hareketleri yukarı bakışta minimal kısıtlılık dışında normal olarak saptandı. Görme ve glob tonusu normal olarak saptanan hastaya 80 mg intravenöz metilprednizolon verildi. Basit ödem olarak değerlendirilen hastanın postoperatif takiplerinde sağ gözdeki yukarı bakış kısıtlılığı ve ödem geriledi.

Preoperatif embolizasyon yapılan diğer hastalarda intraoperatif kanama belirgin olarak azaldı. Ancak bir hastada kanama kontrolü nedeniyle, endoskopik ve transmaksiller yaklaşımının kombine edilmesi gerekti. (Hasta no:4)

Postoperatif dönemde hiçbir hastada cerrahiye veya embolizasyona bağlı komplikasyon gelişmedi.

Hastaların ortalama takip süresi $15,3 \pm 162,2$ ay olarak tespit edildi. Takip süreleri 1 ile 36 ay arasında değişmekteydi. 1 hastada postoperatif 12. ayında nazofarenks MR'da sol nazofarenks posterior-superior sfenoid sinüs anterolateral komşuluğunda 12×8 mm'lik lezyon saptandı. Hastanın takiplerine devam edilmekte ve 30. ayında lezyon 20×13 mm olarak saptandı (Şekil 3). Herhangi bir semptomu ve endoskopik muayenede kitlesel oluşumu saptanmayan hasta yıllık takip ediliyor. Diğer hastalarda nüks saptanmadı.



Şekil 3:

Postoperatif rekürrens saptanan 1 numaralı hastanın aksiyel MR görüntüleri

Tablo I. Hastaların klinik bilgileri

Hasta No	Yaş	Semptom/süre	Evre (modified Fisch)	Kan Transfüzyonu	Takip
1	15	B: 9 ay E: 3 ay	2	2 Ünite ES	36 ay (Postoperatif 30. ay nazofarenks MR 20x13 mm'lik lezyon. Endoskopi: Kitleli lezyon yok, mukozalar sağlıklı)
2	19	E:10 ay B: 6 ay	2	Yok	20 ay
3	21	B: 1 yıl E: 1 ay	1	Yok	20 ay
4	14	B: 6 ay	3A	2 Ünite ES	10 ay
5	16	E: 3 ay B: 3 yıl	3A	2 Ünite ES	5 ay
6	21	E: 1 yıl B: 1 yıl	2	Yok	1 ay

B: Burun tıkanıklığı, E: Epistaksis, ES: Eritrosit süspansiyonu

Tartışma

JNA hastalar tipik olarak ağrısız, tek taraflı burun tıkanıklığı ve rekürren epistaksis şikayetleriyle başvurur⁸. Nazal obstrüksiyon en sık rastlanan; epistaksis ise ikinci sıklıkla rastlanan başlangıç semptomlarıdır⁹. Bizim çalışmamızda da hastaların başlangıç şikayetleri literatürdeki çalışmalarla uyumluydu. JNA dokusu içindeki damarların düz kasdan yoksun olması kanamaları hasta için riskli hale sokabilir. Bu nedenle minimal manipülasyon sonucunda masif kanamalar meydana gelebilir. Burun boşluğuna, sinüslere, orbitaya ve kafa tabanına yayılım sonucunda eşlik eden semptomlara yol açar⁹.

JNA'lu hastalarda anamnez, semptomlar, endoskopi, karakteristik BT ve MR görüntüleriyle birleştirildiğinde biyopsiye gereksinim duymadan tanı konulabilir^[10]. Tanı, evreleme ve tedavi kararında radyolojik inceleme önemlidir. BT ve MR görüntüleme tümör lokalizasyonu ve komşu yapılara invazyonu belirlemede gereklidir. Çalışmamızda hastaların tümünde evrelendirme, tümör lokalizasyonu ve takipte BT ve MR görüntüleme kullanıldı. 3 hastada pterigopalatin fossa uzanımı, 1 hastada infratemporal fossa uzanımı, 1 hastada orbita inferior duvar destrüksiyonu gözlenirken 1 hastada da tümörün nazofarenks ve nazal kavitede sınırlı olduğu saptandı. (Şekil 1,3) Ameliyat öncesi anjiyografi tümörün beslediği damarların görüntülenmesinde ve embolizasyonunda katkı sağlar. (Şekil 2) Eğer tümör atipik görünümdeyse veya hastanın anamnezi olağandışı ise tümör rezeksiyonundan önce biyopsi alınması düşünülebilir¹¹. Çalışmamızdaki 1 hastada da atipik görünüm nedeniyle preoperatif biyopsi alındı.

JNA tedavisinde son yıllarda kullanım sıklığı artan ve başarılı sonuçları bildirilen endoskopik transnazal yaklaşım açık cerrahinin iyi bir alternatifi olmuştur⁷. Endoskopik yaklaşımının başlıca avantajları morbiditeyi azaltması, hastanede kalış süresinin kısaltılması ve tümörün direkt görülerek rezeksiyon yapılabilmesidir. Ayrıca, genç yaş grubundaki hastalarda endoskopik cerrahi ile kozmetik görünüm korunmakta ve kraniyofasiyal gelişimde olumsuz bir etki oluşmamaktadır^{6,8,12-22}. Endoskopik yaklaşım öncesinde tümör büyüklüğünün ve yayılımının belirlenmesi ve besleyici damarlarının embolizasyonu gerekmektedir^{6,8,12-22}.

Yapılan çalışmalar endoskopik cerrahinin, küçük ve erken evre nazofarenks anjiyofibromlarında açık cerrahi kadar başarılı olduğunu göstermiştir^{6,8,12-22}. Erken evrede ilk kez yapılan endoskopik rezeksiyon sonrası %70-100 oranında kontrol sağlanmaktadır^{6,8,12-21}. Ayrıca, nüks ve rezidü gelişen hastalarda revizyon endoskopik cerrahi uygulanması ile de başarılı sonuç alındığı gösterilmiştir^{6,8,12-21}. Ancak ileri evre (intrakranial uzanımlı), tümörlerde kullanımı hakkında bilgiler sınırlıdır^{6,8,12-21}. Olgularımızda intrakranial uzanım yoktu, hastalara endoskopik olarak rezeksiyon uygulanabildi.

JNA'da rekürrens oranı literatürde %30-46 olarak bildirilmiş ve rekürrensler en fazla cerrahiye takip eden ilk 1 yıl içerisinde ileri evre hastalarda meydana gelmiştir⁴. Bizim çalışmamıza alınan 6 hastanın sadece 1'inde (%16) postoperatif birinci yılında MR ile saptanan rekürrens mevcuttu. Rekürrens oranımız literatürdeki oranlardan düşük olmakla birlikte hastaların uzun dönem takipleri gereklidir.

Yapılan çalışmalar cerrahiden 24-72 saat önce yapılan embolizasyonun ameliyat sırasında kan kaybını azalttığını göstermiştir^{5,7,12,23}. Bizim çalışmamızda da 3 hastada kan transfüzyonuna gerek kalmaması bunu desteklemektedir. Ayrıca preoperatif embolizasyon yapılmayan ve çalışmamıza dahil edilmeyen 1 hastada; operasyon sırasında 4 ünite eritrosit süspansiyonuna ihtiyaç duyulması ve endoskopik olarak başlanan ameliyatın sağ gözde gelişen ödem nedeniyle açık tekniğe geçilmesi preoperatif embolizasyonun önemini destekler niteliktedir.

Sonuç

Çalışmamız ve literatür bilgileri ışığında JNA tedavisinde endoskopik yaklaşım preoperatif embolizasyon uygulaması dahilinde güvenle uygulanabilecek bir yöntemdir. Endoskopik yaklaşım hasta morbiditesini önemli ölçüde azalttığından öncelikle seçilecek tedavi yöntemi olmalıdır.

Kaynaklar

1. Waldman SR and others. Surgical experience with nasopharyngeal angiofibroma. *Arc Otolaryngol Head Neck Surg* 1981;107:677.
2. Neel HB and others. Juvenile angiofibroma: review of 120 cases. *Am J Surg* 1973;126:547.
3. Jafek BW and other. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: management of intracranial extension. *Head Neck Surg* 1979;2:119.
4. Gullane PJ and others. Juvenile angiofibroma: a review of the literature and a case series report. *Laryngoscope* 1992;102:928.
5. Tyagi I, Syal R, Goyal A. Staging and surgical approaches in large juvenile angiofibroma-study of 95 cases. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2006;70:1619-27.
6. Marshall AH, Bradley PJ. Management dilemmas in the treatment and follow-up of advanced juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *ORLJ Otorhinolaryngol Relat Spec* 2006;68:273-8.
7. Korcum AF, Ağırır BV, Aksu G, Güney K, Dinç O. Nazofarenks anjiofibromlarında tedavi yaklaşımları, *Kulak Burun Boğaz İhtis Derg* 2008; 18(4):263-7.
8. Fagan JJ, Snyderman CH, Carrau RL, Janecka IP. Nasopharyngeal angiofibromas: selecting a surgical approach. *Head Neck* 1997;19:391-9.
9. Radkowski D, McGill T, Healy GB, Ohlms L, Jones DT. Angiofibroma, Changes in staging and treatment. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1996; 122: 122-9.
10. Lund VJ, Lloyd GAS, Howard DJ. Juvenile angiofibroma: imaging techniques in diagnosis. *Rhinology* 1989; 27:179-85.
11. Burkey B, Kopman CF, Brunberg J. The use of biopsy in the evaluation of pediatric nasopharyngeal masses. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1990; 20:169-79.
12. Pryor SG, Moore EJ, Kasperbauer JL. Endoscopic versus traditional approaches for excision of juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Laryngoscope* 2005; 115:1201-7.
13. Mann WJ, Jecker P, Amedee RG. Juvenile angiofibromas: changing surgical concept over the last 20 years. *Laryngoscope* 2004;114:291-3.
14. Douglas R, Wormald PJ. Endoscopic surgery for juvenile nasopharyngeal angiofibroma: where are the limits? *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;14:1-5.
15. Hoffmann T, Bernal-Sprekelsen M, Koele W, Reittner P, Klein E, Stammberger H. Endoscopic resection of juvenile angiofibromas-long term results. *Rhinology* 2005;43:282-9.
16. Önerci TM, Yucel OT, Öğretmenoğlu O. Endoscopic surgery in treatment of juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67:1219-25.
17. Nicolai P, Berlucchi M, Tomenzoli D, Cappelletto J, Trimarchi M, Maroldi R, et al. Endoscopic surgery for juvenile angiofibroma: when and how. *Laryngoscope* 2003;113:775-82.
18. Roger G, Tran Ba Huy P, Froehlich P, Van Den Abbeele T, Klossek JM, Serrano E, et al. Exclusively endoscopic removal of juvenile nasopharyngeal angiofibroma: trends and limits. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;128:928-35.
19. Wormald PJ, Van Hasselt A. Endoscopic removal of juvenile angiofibromas. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;129:684-91.
20. Mair EA, Battiata A, Casler JD. Endoscopic laser-assisted excision of juvenile nasopharyngeal angiofibromas. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;129:454-9.
21. Khalifa MA. Endonasal endoscopic surgery for nasopharyngeal angiofibroma. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2001;124:336-7.
22. Önerci M, Gumus K, Cil B, Eldem B. A rare complication of embolization in juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2005;69:423-8.
23. Lloyd G, Howard D, Phelps P, Cheesman A. Juvenile angiofibroma: the lesson of 20 years of modern imaging. *J Laryngol Otol* 1999;113:127-34.