

OLGU BİLDİRİMİ

Baş Boyun Bölgesi Yerleşimli Kavernoöz Hemanjioma Eşlik Eden Flebolit Olgusu

Selin YİRMİBEŞ¹, Özlem SARAYDAROĞLU¹, Mehmet Oğuz YENİDÜNYA²

¹ Bursa Uludağ Üniversitesi Tıp Fakültesi, Tıbbi Patoloji Anabilim Dalı, Bursa.

² Bursa Uludağ Üniversitesi Tıp Fakültesi, Plastik ve Rekonstrüktif Cerrahi Anabilim Dalı, Bursa.

ÖZET

Flebolitler, kalsifiye trombüsleri ifade eden lezyonlardır. Baş boyun bölgesinde nadiren rastlanırlar ve sıklıkla bir vasküler malformasyona ya da benign vasküler tümöre eşlik ederler. 4 yaşından beri sol çene altında şişlik şikayeti olan 7 yaşında kız hasta merkezimize başvurdu. Fizik muayenesinde sol submental bölgede 4x3 cm çapında, immobil kitle saptanan hastaya kitle eksizyonu uygulandı. Lezyonun mikroskopik incelemesinde santralinde kalsifikasyon barındıran, konsantrik yapıya sahip multipl nodüler lezyonlar ve lezyonlara bitişik alanlarda, genişlemiş damarlarla karakterize kavernoöz hemanjiom izlendi. Bu bulgularla olguya kavernoöz hemanjioma eşlik eden flebolit tanısı verildi. Flebolitler, vasküler lezyonlardan en sık hemanjiomlara eşlik eder. Flebolitlerin etiolojisinde vasküler malformasyon veya travma kaynaklı periferik kan akımındaki yavaşlamanın yer aldığı düşünülmektedir. Klinik olarak karışabilen sialolitiazis, travmatik myozitis ossifikans, kalsifiye lenf nodülleri ve bazı neoplaziler ayırıcı tanı içinde ele alınmalıdır.

Anahtar Kelimeler: Baş boyun. Flebolit. Hemanjiom. Trombüs. Vasküler.

A Case of Phlebolith with Cavernous Hemanjioma of The Head and Neck Region

ABSTRACT

Phleboliths are lesions that define calcified thrombi. They are rarely encountered in the head and neck region and often accompany a vascular malformation or a benign vascular tumor. A 7-year-old female patient with the complaint of swelling of the submental area since the age of 4, was admitted to our center. In the physical examination, a 4x3 cm immobile mass was detected, and excisional biopsy was performed. Microscopic evaluation of the lesion revealed multiple concentric nodular lesions with central calcification. Cavernous hemangioma characterized by dilated vessels in adjacent area was observed. The patient was diagnosed with phlebolith and cavernous hemangioma. Phleboliths most often accompany hemangiomas. The etiology of phleboliths is considered to be a slowdown in peripheral blood flow caused by a vascular malformation or trauma. Sialolithiasis, traumatic myositis ossificans, calcified lymph nodes and some neoplastic lesions that can be confused with phleboliths clinically, should be considered in the differential diagnosis.

Key Words: Head and neck. Hemangioma. Phlebolith. Trombus. Vascular.

Flebolitler, kalsifiye trombüsleri ifade eden ve genellikle multipl görülen lezyonlardır^{1,2}. İlk kez 1843 yılında Canstatt tarafından splenik vende tanımlanan flebolit, daha sonra Rokitansky tarafından en sık pelvik bölge venlerinde yerleştiği bildirilmiştir³. Klinik ve radyolojik olarak pek çok lezyonla karışabilen

ancak, histopatolojik olarak oldukça karakteristik ve bir o kadar da şaşırtıcı özelliğe sahip olan lezyonlardır. Flebolitlerden en sık etkilenen alan prostatik, uterin ya da intestinal venleri içine alan pelvik bölgedir. Baş boyun bölgesinde ise nadiren rastlanırlar⁴.

Baş boyun bölgesinde genellikle bir vasküler malformasyona ya da benign vasküler tümöre eşlik ederler. Eşlik eden lezyon sıklıkla bir hemanjiom iken herhangi bir vasküler lezyon olmaksızın da gelişebilirler⁴⁻⁶.

Geliş Tarihi: 31.Ağustos.2021

Kabul Tarihi: 07.Kasım.2021

Dr. Selin YİRMİBEŞ
Bursa Uludağ Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Tıbbi Patoloji Anabilim Dalı,
Bursa
Tel: 0536 868 69 27
E-posta: seelin.narter@gmail.com

Yazarların ORCID Bilgileri:

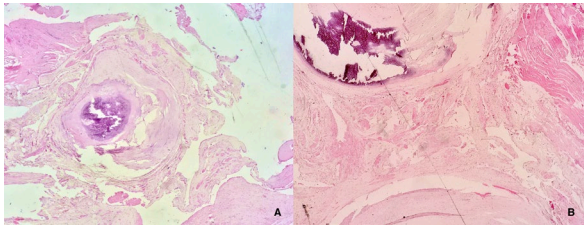
Selin YİRMİBEŞ: 0000-0002-8211-6175
Özlem SARAYDAROĞLU: 0000-0002-4127-9656
Mehmet YENİDÜNYA: 0000-0002-6802-0409

Vaka Sunumu

4 yaşından beri sol çene altında şişlik şikayeti olan 7 yaşında kız hasta, merkezimize başvurdu. Hastanın daha önce aldığı antibiyotik tedavisinden fayda görmediği bildirildi. Fizik muayenesinde sol submental bölgede 4x3 cm çapında, pulsatil olmayan, immobil kitle saptandı. Bilgisayarlı tomografi incelemesinde

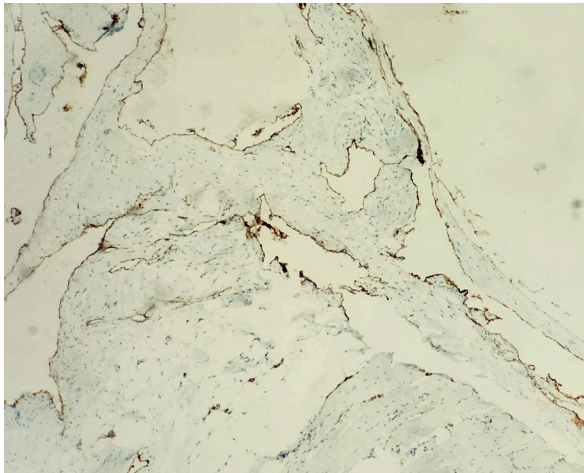
sol submandibuler gland anteriorunda, T2A görüntülemesinde belirgin hiperintens, içerisinde T1A ve T2A görüntülemelerinde hipointens alanlar bulunduran, kontrastlı görüntülemesinde belirgin kontrast tutan lezyon izlendi. Ultrasonografik (USG) incelemesinde lezyonun solid karakterde olduğu ve içerisinde kalsifikasyon bulunduğundan saptandı. Doppler USG'de lezyonun belirgin vaskülarizasyona sahip olduğu tespit edildi.

Hastaya sol submandibular alandan kitle eksizyonu uygulandı. Patoloji laboratuvarına gönderilen materyalin makroskopik değerlendirmesinde büyüğü 1,1x1x0,3, küçüğü 0,4x0,3x0,3 cm boyutlarında iki adet yumuşak doku parçası izlendi. Mikroskopik incelemede, boyuna ait yumuşak dokular içerisinde yerleşmiş, santralinde kalsifikasyon barındıran, hyalinize-sklerotik özellikte, konsantrik yapıya sahip multipl nodüler lezyonlar görüldü. Bu lezyonlara bitişik alanlarda, yer yer birbiri ile birleşme eğilimi gösteren, genişlemiş damarlarla karakterize kavernöz hemanjiom tespit edildi (Şekil-1). CD34 ve CD31 immünohistokimyasal çalışmaları ile damar endotelinde pozitif boyanma saptandı (Şekil-2). Bu bulgular ışığında olguya kavernöz hemanjiom ve eşlik eden flebolit tanısı verildi.



Şekil-1.

A. Santralinde kalsifikasyona sahip, hyalinize, konsantrik nodül görünümünde flebolit görüntüsü (H&E x100). B. Genişlemiş ve birleşme eğiliminde damar yapılarından oluşan kavernöz hemanjiom flebolite eşlik etmekte (H&E x400).



Şekil-2.

İmmünohistokimyasal olarak CD31 ile kavernöz hemanjioma ait damar endotelinde pozitif boyanma (DAB x400)

Tartışma

Birçok vasküler lezyonu içine alan vasküler malformasyonlar, sıklıkla doğumda veya erken çocukluk çağında ortaya çıkarlar. Vasküler malformasyonlar ve flebolitler birlikte görülebilirler^{7,8}. Flebolitler, vasküler lezyonlardan en sık hemanjiomlara eşlik eder⁵. Hemanjiomlar en sık çocukluk çağında baş boyun bölgesinde görülen benign vasküler tümörlerdir. Kapiller, kavernöz ve mikst olmak üzere üç alt tipi bulunmaktadır⁹.

Flebolitlerin gelişiminde, herhangi bir sebeple ortaya çıkabilen periferik kan akımındaki yavaşlamanın rol oynadığı düşünülmektedir¹⁰. Gelişim mekanizması kısaca şu şekildedir; hemanjiom gibi damarsal lezyonların kıvrımlı vasküler kanalları periferik kan akımını yavaşlatıp organize trombüs gelişimine sebep olur. Trombüs kalsifikasyonu gerçekleştiğinde bu yapı, flebolitin çekirdeğini oluşturur. Trombositleri de içeren fibrinöz bileşen bu çekirdeğe yapışır ve bunu yeniden kalsifikasyon izler. Bu sürecin tekrarı flebolitin büyümesi ile sonuçlanır^{11,12}. Bizim olgumuzda da flebolite eşlik eden kavernöz hemanjiom mevcuttu. Dudak ve oral kavite yerleşimli soliter lezyonlar ise, travma sonucunda kan akımında yavaşlama, trombüs gelişimi ve bunu takip eden mineral depolanması ile oluşabilirler⁴.

Kalsiyum karbonat ve kalsiyum fosfat tuzlarının karışımından oluşan flebolit çekirdeği radyolojik olarak radyopak ve radyolüsent görünürler. Bu da lezyonun tipik soğan halkası benzeri görünümüne sebep olur^{2,13,14}. Histopatolojik olarak da radyolojisine benzer şekilde, konsantrik kalsifikasyonların yarattığı soğan halkası benzeri görüntüye rastlanır⁴. Benzer şekilde olgumuzda, radyolojik incelemelerde çoğunlukla hiperintens, yer yer hipointens alanlar içeren multipl kalsifiye nodüller izlendi.

Flebolitlerin en sık izlendiği bölge prostatik, uterin ya da intestinal venleri içine alan pelvik alandır⁴. Literatürde daha az sıklıkla parotis, submandibuler alan, masseter kası, gingiva gibi baş boyun bölgesi yerleşimli vaka bildirileri mevcuttur^{7,15-18}.

Flebolitler klinik ve radyolojik olarak sialolitiazis, travmatik myozitis ossifikans, kalsifiye lenf nodülleri, karotis arter kalsifikasyonları, kalsifiye akne lezyonları, tüberküloz ve bazı neoplaziler ile karışabilir ve bu lezyonlar ayırıcı tanı içinde ele alınmalıdır⁶. Bu lezyonlardan ayırımı ve kesin tanı için eksizyonel biyopsi materyalinde patolojik inceleme önemlidir.

Etik Kurul Onay Bilgisi:

Olgu bildirimini olduğundan dolayı Etik Kurul onayına gerek yoktur. Hasta onamı alınmıştır.

Araştırmacı Katkı Beyanı: Fikir ve tasarım: Ö.C., V.Ö., F.Ö., R.A., Veri toplama ve işleme: Ö.C., B.O., C.Y., Analiz ve verilerin yorumlanması: Ö.C., V.Ö., İ.E.P., Makalenin önemli bölümlerinin yazılması: Ö.C., V.Ö., T.E.

Kavernöz Hemanjioma Eşlik Eden Flebolit

Destek ve Teşekkür Beyanı: Makale çalışmalarına finansal destek sağlayan yoktur.

Çıkar Çatışması Beyanı: Makale yazarlarının çıkar çatışması beyanı yoktur.

Kaynaklar

1. Altuğ HA, Büyüksoy V, Okçu KM, Doğan N. Hemangiomas of the head and neck with phleboliths: clinical features, diagnostic imaging, and treatment of 3 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007;103(3):e60-4.
2. Mandel L, Perrino MA. Phleboliths and the vascular maxillofacial lesion. *J Oral Maxillofac Surg* 2010;68:1973-6.
3. Dempsey EF, Murley RS. Vascular malformations simulating salivary disease. *Br J Plast Surg* 1970;23:77-84.
4. Gouvêa Lima Gde M, Moraes RM, Cavalcante AS, Carvalho YR, Anbinder AL. An Isolated Phlebolith on the Lip: An Unusual Case and Review of the Literature. *Case Rep Pathol* 2015;2015:507840.
5. Karlıoğlu H, Sumer AP. Hemangioma Presenting with Multiple Phleboliths: Case Report with CBCT Finding. *Cumhuriyet Dental Journal* 2018;21(3):263-7.
6. Kato H, Ota Y, Sasaki M, Arai T, Sekido Y, Tsukinoki K. A phlebolith in the anterior portion of the masseter muscle. *Tokai J Exp Clin Med* 2012;37(1):25-9.
7. Chuang CC, Lin HC, Huang CW. Submandibular cavernous hemangiomas with multiple phleboliths masquerading as sialolithiasis. *Journal of the Chinese Medical Association* 2005;68(9):441-3.
8. Orhan K, Icen M, Aksoy S, Avsever H, Akcicek G. Large arteriovenous malformation of the oromaxillofacial region with multiple phleboliths. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2012;114:e147-58.
9. Tucci FM, De Vincentiis GC, Sitzia E, Giuzio L, Trozzi M, Bottero S. Head and neck vascular anomalies in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2009 Dec;73:S71-6.
10. O'Riordan B. Phleboliths and salivary calculi. *Br J Oral Surg* 1974;12:119-31.
11. Kanaya H, Saito Y, Gama N, Konno W, Hirabayashi H, Haruna S. Intramuscular hemangioma of masseter muscle with prominent formation of phleboliths: a case report. *Auris Nasus Larynx* 2008;35:587-91.
12. Park JW, Kim CH, Moon CW. Intramuscular hemangioma in buccal cheek: a case report. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 2017 Aug;43(4):262-6.
13. Cui B, Wang DH, Wang GJ, et al. Cavernous hemangiomas of the temporalis muscle with prominent formation of phleboliths. Case report and review of the literature. *Medicine* 2017;96(48):e8948.
14. Zengin AZ, Celenk P, Sumer AP. Intramuscular hemangioma presenting with multiple phleboliths: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013;115:e32-6.
15. Jun CH, Chul LJ, Hyuk KJ, Man LY, Joo LH. Cavernous Hemangioma With Large Phlebolith of the Parotid Gland. *Journal of Craniofacial Surgery* 2013;24(6):e621-3.
16. Gooi Z, Mydlarz WK, Tunkel DE, Eisele DW. Submandibular venous malformation phleboliths mimicking sialolithiasis in children. *Laryngoscope* 2014;124(12):2826-8.
17. Alami B, Lamrani Y, Addou O, et al. Presumptive intramuscular hemangioma of the masseter muscle. *Am J Case Rep* 2015;16:16-9.
18. Ramesh R, Sadasivan A, Sathyan P. Incidental Finding of Phlebolith in a Patient with Chronic Inflammatory Gingival Enlargement – A Case Report. *Advances in Dentistry & Oral Health* 2018;9(1):45-48.

