Angioleiomyoma gardła środkowego – opis przypadku

Angioleiomyoma of oropharynx – case study

Michalina Staśkiewicz[1], Wojciech Gawęcki[2], Hanna Klimza[2], Małgorzata Wierzbicka[2]

[1]Studenckie Koło Naukowe przy Katedrze i Klinice Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej Uniwersytetu Medycznego im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu
[2]Katedra i Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej Uniwersytetu Medycznego im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

Streszczenie

W pracy przedstawiono przypadek naczyniakomięśniaka gładkokomórkowego (angioleiomyoma) o nietypowej lokalizacji, wywodzącego się z migdałka podniebiennego u 20-letniej pacjentki. Leczeniem z wyboru była chirurgiczna resekcja guza. W trakcie 6-miesięcznej obserwacji nie stwierdzono nawrotu.

Słowa kluczowe: *angioleiomyoma, guz gardła środkowego, leczenie chirurgiczne.*

Abstract

In the article we present a case of a rare location of angioleiomyoma, arising from palatine tonsil in 20 years old patient. First-choice treatment was resection of the tumor. The recurrence was not observed during 6 months after surgery.

Key words: *angioleiomyoma, oropharyngeal tumor, surgical treatment.*

(Postępy w Chirurgii Głowy i Szyi 2017; 2: 7–9)

Wstęp

Angioleiomyoma (*vascular leiomyoma*, naczyniakomięśniak gładkokomórkowy) to rzadka, łagodna zmiana wywodząca się z mięśniówki gładkiej błony środkowej naczyń [1]. Najczęściej występuje w macicy, przewodzie pokarmowym, na kończynach oraz skórze, rzadko w obszarze głowy i szyi [1–3]. Opisywana lokalizacja zmiany – gardło, jest bardzo rzadka, w piśmiennictwie odnotowano pojedyncze przypadki [3–5]. Objawem guza umiejscowionego w gardle mogą być zaburzenia połykania i uczucie obecności ciała obcego. Chirurgiczna resekcja zmiany jest zarówno metodą diagnostyczną, jak i leczeniem z wyboru [1, 6].

Przedstawiamy przypadek uszypułowanego guza wywodzącego się z migdałka podniebiennego u 20-letniej pacjentki z nieobciążonym wywiadem.

Opis przypadku

Pacjentka, lat 20, zgłosiła się do izby przyjęć z powodu uczucia obecności ciała obcego w gardle i zaburzeń połykania od tygodnia. Została przyjęta w trybie pilnym do Kliniki Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej Uniwersytetu Medycznego w Poznaniu. W badaniu laryngologicznym stwierdzono uszypułowany, balotujący guz zlokalizowany w rejonie dolnego bieguna migdałka podniebiennego lewego, o wymiarach ok. 3 × 4 cm (ryc. 1). Pacjentka nie zgłaszała chorób towarzyszących, wywiad rodzinny był nieobciążony. Wykonano badanie ultrasonograficzne (USG) szyi, w którym nie stwierdzono odchyleń od normy. Podjęto decyzję o chirurgicznym usunięciu zmiany. Resekowany guz został przesłany do badania histopatologicznego. Okres pooperacyjny przebiegał bez powikłań. Morfologicznie zmiana była lita, uszypułowana, okrągłego kształtu (ryc. 2). W badaniu histopatologicznym stwierdzono proliferujące, grubościenne naczynia oraz wiązki włókien mięśniowych. W podścielisku obecne były zmiany zapalne, a na powierzchni owrzodzenia. Obraz mikroskopowy świadczył o rozpoznaniu *angioleiomyoma*. W badaniu immunohistochemicznym odnotowano obecność wimentyny (+++), SMA (+++), β-kateniny (+/–), CD31 (+), Ki67 (+ w 5% komórek).

Rycina 1. *Angioleiomyoma* gardła środkowego w badaniu laryngologicznym

Rycina 2. Przekrój poprzeczny resekowanej zmiany

Pacjentka została objęta regularną kontrolą poradni laryngologicznej.

Omówienie

Naczyniakomięśniak gładkokomórkowy to podtyp mięśniaka gładkokomórkowego (*leiomyoma*) wywodzącego się z tkanki mezenchymalnej.

Etiologia guza nie została dotąd całkowicie zbadana, implikuje się udział urazu, estrogenu stosowanego miejscowo, zaburzeń równowagi hormonalnej, infekcji, malformacji tętniczo-żylnych, zastoju żylnego oraz translokacji genetycznych [7], jednak u przedstawionej pacjentki nie stwierdzono jednoznacznego czynnika ryzyka.

W związku z dominującym wzorcem naczyniowym *angioleiomyoma* dzieli się na trzy podtypy: lity (włośniczkowy), żylny i jamisty [8].

Zmiana ta najczęściej wywodzi się z układu rozrodczego, pokarmowego oraz mięśni przywłośnych skóry [9]. *Angioleiomyoma* występuje zwykle między 30. a 60. rokiem życia, przeważnie u płci męskiej [1, 9–12]. Większość guzów stwierdza się na kończynach [12]. Znacznie rzadziej rozwijają się one w rejonie głowy i szyi [1, 9]. Udział procentowy zmian w tej lokalizacji wynosi 8,5–10% w zależności od publikacji [6, 12]. W nielicznych przypadkach stwierdzano *angioleiomyoma* w obrębie małżowiny usznej, jamy nosowej, jamy ustnej, nozdrzy zewnętrznych, szyi, wargi, kąta szpary powiekowej, czoła oraz podniebienia twardego [6, 7, 13]. W piśmiennictwie pojawiają się również przypadki *angioleiomyoma* krtani [1, 9, 14] oraz niezwykle rzadkie opisy zmian w obrębie gardła [3–5]. U opisywanej pacjentki guz umiejscowiony był nietypowo – w obszarze bieguna dolnego migdałka podniebiennego. W piśmiennictwie można znaleźć pojedyncze opisy podobnej lokalizacji – w obrębie migdałka [4] oraz ściany gardła środkowego [5]. *Angioleiomyoma* w większości lokalizacji jest bolesna [1, 10], jednak w rejonie głowy i szyi rzadko powoduje dolegliwości bólowe [12], co odpowiada obrazowi klinicznemu przedstawionej pacjentki. Zmiana ta zwykle ma do 2 cm średnicy [11, 13] oraz charakteryzuje się powolnym wzrostem i rzadkimi nawrotami [13].

Do objawów klinicznych występujących u pacjentów ze zmianami w opisywanej lokalizacji zalicza się: uczucie obecności ciała obcego, ból, utrudnione oddychanie, duszność, chrypkę, dyskomfort w obrębie dróg oddechowych, dysfagię, odynofagię, kaszel [1, 5, 10, 11, 14]. W prezentowanym przypadku pacjentka skarżyła się głównie na uczucie ciała obcego w gardle oraz zaburzenia połykania.

Diagnostyka przedoperacyjna *angioleiomyoma* jest trudna. W badaniu tomografią komputerową zmiana ulega intensywnemu, heterogennemu wzmocnieniu kontrastowemu [3, 12]. Badanie cytologiczne jest niediagnostyczne z powodu bogatej struktury naczyniowej *angioleiomyoma* [12]. Usunięcie zmiany oraz badanie histopatologiczne stanowią zarówno postępowanie diagnostyczne, jak i leczenie z wyboru [1, 6, 12]. W badaniu histopatologicznym resekowanej zmiany stwierdzono cechy wskazujące na rozpoznanie *angioleiomyoma*, takie jak charakterystyczny układ grubościennych naczyń oraz wiązek włókien mięśniowych gładkich. Wyniki badania immunohistochemicznego (obecność wimentyny, CD31, SMA) odpowiadają rozpoznaniu [6, 10, 12]. Diagnostyka różnicowa *angioleiomyoma* powinna obejmować następujące schorzenia: *hemangioma*, *angiofibroma*, *fibroma*, *angiomyolipoma* oraz *angiomyosarcoma*, łagodne guzy mezenchymalne (w tym *lipoma*, *schwannoma* i *neurofibroma*), pleomorficzne gruczolaki oraz torbiele [1, 6, 10, 12].

Chirurgiczne usunięcie zmiany wzdłuż jej marginesów lub torebki jest jedynym efektywnym leczeniem z wyboru [2, 11, 12]. Możliwe jest wykonanie przedoperacyjnej embolizacji w celu minimalizacji ryzyka

krwotoku [1, 2]. U opisywanej pacjentki zabieg wykonano w znieczuleniu miejscowym, bez wcześniejszej embolizacji. Pacjentka następnego dnia została wypisana do domu.

Rokowanie w przypadku chirurgicznego usunięcia zmiany jest bardzo dobre, nawroty są rzadkie [4, 11]. U przedstawionej kobiety w trakcie 6-miesięcznej obserwacji nie stwierdzono nawrotu.

Piśmiennictwo

1. Zhao X, Yu D, Zhao Y, et al. A case of laryngeal angioleiomyoma and review of literature. Int J Clin Exp Med 2015; 8: 1446-52.
2. Ranjan S, Singh KT. Gingival angioleiomyoma-infrequent lesion of oral cavity at a rare site. J Oral Maxillofac Pathol 2014; 18: 107-10.
3. Kim DE, Lee SK, Kwon SY, et al. Pedunculated angioleiomyoma of the nasopharynx: a case rport. J Korean Soc Radiol 2012; 66: 317-20.
4. Shetty SC, Kini U, D'Cruz MN, Hasan S. Angioleiomyoma in the tonsil: an uncommon tumour in a rare site. Br J Oral Maxillofac Surg 2002; 40: 169-71.
5. Chun JH, Kim HY, Nam SY, et al. A case of angioleiomyoma of the oropharyngeal wall. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2007; 50: 833-5.
6. Wang CP, Chang YL, Sheen TS. Vascular leiomyoma of the head and neck. Laryngoscope 2004; 114: 661-5.
7. Hung KF, Yan AH, Kao SY, et al. Angioleiomyoma in the right lingual gingival – a case report. Chin J Oral Maxillofac Surg 2005; 16: 179-87.
8. Matsuyama A, Hisaoka M, Hashimoto H. Angioleiomyoma: a clinicopathological and immunohistochemical reappraisal with special reference to the correlation with myopericytoma. Human Pathol 2007; 38: 645-51.
9. Xu Y, Zhou S, Wang S. Vascular leiomyoma of the larynx: a rare entity. Three case reports and literature review. ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec 2008; 70: 264-7.
10. Liu Y, Li B, Li L, et al. Angioleiomyomas in the head and neck: a retrospective clinical and immunohistochemical analysis. Oncol Lett 2014; 8: 241-7.
11. Woo KS, Kim SH, Kim HS, et al. Clinical experience with treatment of angioleiomyoma. Arch Plastic Surg 2014; 41: 374-8.
12. Yoon TM, Yang HC, Choi YD, et al. Vascular leiomyoma in the head and neck region: 11 years experience in one institution. Clin Exp Otorhinolaryngol 2013; 6: 171-5.
13. Mahima VG, Patil K, Srikanth HS. Recurrent oral angioleiomyoma. Contemp Clin Dent 2011; 2: 102-5.
14. Sung YE, Rhee CK, Lee KY. A rare case of angioleiomyoma arising in the subglottic area to upper trachea of a patient with underlying asthma. J Pathol Transl Med 2017; 51: 92-5.

Adres do korespondencji:

Michalina Staśkiewicz
Studenckie Koło Naukowe
przy Katedrze i Klinice Otolaryngologii
i Onkologii Laryngologicznej
Uniwersytet Medyczny w Poznaniu
ul. Przybyszewskiego 49
60-355 Poznań
tel.: +48 61 869 13 97
e-mail: mmstaskiewicz@wp.pl