

OLGU BİLDİRİSİ / CASE REPORT

Auriküler eozinofilik anjiolenfoid hiperplazi

E. Acioglu, M.G. Güvenç, G. Özbilen Acar, C. Duman, N. Korkut

Auricular angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia

Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (AHE) is uncommon benign inflammatory disease that is characterized with incorrect vascular proliferation with prevalent eosinophilia and/or other inflammatory cells infiltration on the vascular border. The main cause of this pathology is not well known however the main etiological factor was thought as trauma and reactive hyperplasia due to this trauma. Face especially auricula is the most common localization in the head and neck region. Varied treatment modalities were used (surgical excision, laser ablation, cryotherapy and local steroid injections) for these lesions which is mostly presented as itching, bleeding plaque or nodule. In spite of these treatment methods incidence of the recurrence is very high. In this article, we discuss a patient diagnosed as auricular AHE and treated with CO₂ laser ablation with the current literature.

Key Words: Laser, angiolymphoid hyperplasia, Kimura, auricula.

Turk Arch Otolaryngol, 2009; 47(1): 43-47

Özet

Eozinofilik anjiolenfoid hiperplazi (EALH), nadir görülen, benign karakterde, damar çeperlerinde yaygın eozinofil ve/veya diğer inflamatuvar hücre infiltrasyonunun bulunduğu, yanlış vasküler proliferasyonla karakterize iltihabi bir hastalıktır. Sebebi tam olarak bilinmeyen bu hastalığın etyolojisinde travma ve ona bağlı reaktif hiperplazi olduğu düşünülmektedir. Baş-boyun bölgesinde, yüzde ve özellikle kulakta, ağrılı ve kanamalı nodül veya plak tarzında lezyonlar ile ortaya çıkan bu hastalığa yönelik birçok tedavi yöntemi (cerrahi eksizyon, lazer ablasyon, kriyoterapi, lokal steroid enjeksiyonları) bulunmaktadır. Bu tedavi yöntemlerine rağmen nüks oranı oldukça fazladır. Bu yazıda, auriküler EALH tanısı konan ve tedavide CO₂ lazer kullandığımız bir vaka güncel literatür eşliğinde tartışılmıştır.

Anahtar Sözcükler: Lazer, anjiolenfoid hiperplazi, Kimura, auricula.

Türk Otolarengoloji Arşivi, 2009; 47(1): 43-47

Dr. Engin Acioglu, Dr. Gül Özbilen Acar

SB Göztepe Eğitim ve Araştırma Hastanesi KBB Kliniği, İstanbul

Dr. M. Güven Güvenç

İstanbul Bilim Üniversitesi Tıp Fakültesi KBB Anabilim Dalı, İstanbul

Dr. Cihan Duman, Dr. Nazım Korkut

İstanbul Üniversitesi Cerrahpaşa Tıp Fakültesi KBB Anabilim Dalı, İstanbul

Giriş

Eozinofilik anjiolenfoid hiperplazi (EALH) çok seyrek rastlanan inflamatuvar bir hastalıktır. İnsidansı tam olarak bilinmeyen bu hastalık, özellikle yüzde ve sıklıkla auriküler bölgede kanamalı, ağrılı, kaşınıtılı, mavi-mor renkte olan nodül/plak tarzında kitle veya kitleler ile ortaya çıkar.¹ EALH'nin sebebi tam

olarak bilinmemektedir fakat travma ve buna bađlı reaktif hiperplazinin neden olduđu dűşünülmektedir.^{2,3} Histopatolojik olarak kapiller proliferasyonu ve damar cidarında inflamatuvar hücre (eozinofiller ve mast hücreleri) infiltrasyonu ile karakterizedir.

Sıklıkla 2. ve 4. dekad genç kadınları etkileyen EALH'de lezyonlar %85 yüz ve boyunda, özellikle auriküler bölgede ortaya çıkar. Lezyonlar hiperöstrojenemik dönemlerde (gebelik, oral kontraseptif kullanımı, vb) büyüme gösterebilir ancak hiçbir zaman malign transformasyon gibi ciddi komplikasyonlar ortaya çıkmaz.⁴ Kesin tanısı biyopsi ile konulan EALH için birçok tedavi yöntemi –küretaj, krioterapi, cerrahi eksizyon, sistemik veya lokal steroid uygulananımı ve lazer ablasyon– bildirilmiştir.¹ Bu tedavi yöntemlerinin hiçbirisi tam bir başarı sağlayamamaktadır ve lokal nüks oranı oldukça yüksektir.

Olgu Sunumu

20 yaşında bayan hasta, kliniđimize 3 yıldır devam eden sol kulak antiheliksinde ve dış kulak yolunda ağrılı, kaşıntılı, 5-6 adet mavi-mor renkte, nodül tarzında kitleler ve bu kitlelerden sık aralıklarla meydana gelen kanama şikayeti ile başvurdu (Resim 1). Daha önceden farklı kliniklerce takip edilen ve bu bölgeden çeşitli nedenlerle alınan kültür sonuçları negatif gelen hastaya lokal anestezi altında insizyonel biyopsi uygulanmış. Yapılan histopatolojik incelemede küçük damarlarda proliferasyon ve damarlar etrafında lenfositler (eozinofil) infiltrasyon ile karakterize EALH ile uyumlu olduđu saptanmış. Uygulanan lokal ve sistemik tedaviler (oral kortikosteroid, lokal steroid enjeksiyonları, kriyoterapi) ile şikayetlerinde iyileşme gözlenmeyen ve kliniđimize refere edilen hastanın yapılan muayenesinde bu kanamalı odaklar dışında herhangi bir patoloji saptanmadı. Hastanın biyokimyasal değerleri normaldi ancak lezyon bölgesinde gelişen sık kanama ataklarından dolayı anemi mevcuttu.



Resim 1. Hastanın aşırı kaşıntı ve kanama ile kliniđimize ilk başvurduđu dönem. Sol aurikula antiheliks bölgesine yerleşmiş ve sol dış kulak yoluna uzanım gösteren nodüler lezyon. [Bu resim, derginin www.turkarchotolaryngol.org adresindeki online versiyonunda renkli görülebilir]



Resim 2. İkinci seans lazer ablasyon tedavisi öncesi nüks olan bölgeler. Lezyon ilk oluştuđu bölgede 6 ay sonra yeniden tekrarlamıştır. [Bu resim, derginin www.turkarchotolaryngol.org adresindeki online versiyonunda renkli görülebilir]

Kan eozinofil düzeyi normal sınırlarda olan ve etyopatogenezde rol oynayabilecek travma öyküsü bulunmayan hastada gebelik veya oral kontraseptif kullanımı gibi hiperöstrojenemik döneme ait bulgular da saptanmadı. Kan östrojen düzeyleri normal sınırlarda idi.

Nüks oranının yüksek olması sebebi ile lazer tedavisinin bir kaç seans tekrarlanabileceği konusunda hasta bilgilendirilerek genel anestezi altında, sol kulak aurikulası ve dış kulakta yerleşik odaklara 6 Watt CO₂ lazer ablasyon uygulandı. Postop, dış kulak yoluna merosel konularak siprofloksasin tedavisi verildi. Lezyon bölgesine ise lokal steroidli pomad ile masaj uygulandı. Hasta, lokal steroid tedavisi düzenlenerek aylık takibe alındı. 6 ay sonra, lazer tedavisi uygulanan bölgede lezyonların kısmen belirginleşmesi üzerine ikinci bir lazer ablasyon tedavisi uygulandı (Resim 2).

Operasyon sonrası takiplerinin ilk aylarında kanama ve kaşıntı şikayeti olmayan ve görünüm olarak herhangi bir aktif odağı bulunmayan (Resim 3) hastada zamanla ilk önce kaşıntı şikayetleri başladı. Takip süresince kaşıntı şikayetlerinde progresyon görülen vaka, verilen antihistaminik ve lokal steroid tedaviden fayda görmedi. İlk aylarda belirgin bir odak görülmeyen hastada zamanla aynı bölgede yeni odaklar oluşmaya başladı. Kaşıntı ile kanama şikayetleri artan hastaya 8 ay sonra tekrar genel anestezi altında 12-16 Watt CO₂ lazer ile ablasyon tekrarlandı. En son yapılan lazer tedavisinde daha derin ve geniş planda ablasyon yapıldı. Hastanın yapılan takiplerinde yaklaşık 14 ay sonra odaklarda tekrar belirginleşme, kaşıntı ve kanama meydana geldi (Resim 4). En son gelişen nüks daha yavaş bir progresyon gösterdi. Lazer ablasyon tedavisinden yararlı sonuç elde edilemeyeceğinden hastaya genel anestezi altında bu bölgenin soğuk cerrahi ile total eksizyonu ve split thickness greft ile rekonstrüksiyonu önerildi fakat postoperatif fibrozis ve dış kulak yolu obstrüksiyonu



Resim 3. İkinci seans lazer ablasyon tedavisi sonrası 1. aydaki görünüm. Hastanın bu dönemde belirgin kaşıntı şikayeti ve görünen aktif bir lezyon bulunmamaktadır. [Bu resim, derginin www.turkarchotolaryngol.org adresindeki online versiyonunda renkli görülebilir]



Resim 4. Üç defa yapılan lazer ablasyon tedavisi sonrası 14. ayda tekrarlayan lezyonların görünümü. Kaşıntı ve buna bağlı kanama sonucu lezyonların üzerinde yer yer pıhtı ve kabuklanma mevcut. [Bu resim, derginin www.turkarchotolaryngol.org adresindeki online versiyonunda renkli görülebilir]

yon riski nedeni ile hasta tarafından kabul edilmedi. Hasta halen tarafımızca takip edilmektedir.

Tartışma

EALH'nin histopatolojik olarak vasküler ve inflamatuvar olmak üzere iki komponenti bulunmaktadır. Karakteristik olarak, kapiller kan damarlarında proliferasyon ve damar cidarında genişlemiş endotelial hücreler ile birlikte eozinofil ve mast hücrelerini içeren perivasküler infiltrasyon gözlenmektedir.⁵ Bazı vakalarda periferik eozinofili de tespit edilebilir (%20). Sebebi tam olarak bilinmeyen bu patolojinin etyolojisinde en yaygın kabul gören yaklaşım travma ve buna bađlı gelişen reaktif süreçte oluşan arteriovenöz şantlardır.⁴ Kesin tanı yöntemi, insizyonel veya eksizyonel biopsidir. Mikroskopik incelemede damar çeperinde iltihabi hücre infiltrasyonu görülmelidir.

EALH primer olarak genç ve orta yaş bayanları etkiler. Lezyonlar hiperöstrojenemik dönemlerde (hamilelik, oral kontraseptif kullanımı, vs.) büyüme gösterebilir. Sıklıkla yüz ve boyunda (%85), eritemli zemin üzerinde kubbe biçimli papül veya nodül şeklinde ortaya çıkar. Lezyonları ağrılı, kaşıntılı ve kanamalıdır. Periauriküler bölgede daha sık olmasına rağmen bazı vakalarda oral mukoza ve farenkste dahi tutulum gözlenmiştir.⁶

EALH şüphesi bulunan durumlarda mutlaka Kimura hastalığı ile ayırıcı tanıya gidilmelidir. Kimura hastalığı her ne kadar EALH ile histopatolojik olarak benzerlik gösterse de periauriküler ve submandibüler bölgede derin subkutanöz plaklar, bölgesel lenfadenopati ve artmış serum IgE seviyeleri ile karakterizedir.⁵ Histolojik olarak kapiller proliferasyondan çok lenfoid foliküllerde artış ve yaygın fibrozis içerir. Kesin ayırıcı tanı için biyopsi mutlak şekilde uygulanmalıdır.

EALH tedavisinde birçok yöntem olmasına rağmen (cerrahi eksizyon, kriyoterapi, lokal veya siste-

mik steroidler, radyoterapi ve lazer ablasyon) hiçbiri tutarlılık gösteren efektif uygulama değildir.⁶ Hasta kliniğimize refere edilmeden önce uygulanan lokal ve sistemik kortikosteroid tedavisine ve kriyoterapiye cevap alamamıştı. Yaklaşık 2.5 yıl boyunca takip edilen ve üç defa CO₂ lazer ablasyon tedavisi uygulanan hastada her kadar rutin kontrollerde lokal nüks saptanmış olsa da ablasyon sırasında uygulanan lazerin spot boyutunun azaltılarak ve uygulanan gücün (Watt) arttırılarak meydana gelecek nüks aralığının arttığı gözlemlenmiştir. Bu çalışmada hem etkinliğini değerlendirmek hem de karşılaştırmak amaçlı aynı bölgeye CO₂ lazer yerine Nd: YAG veya argon lazer fotokoagülasyon uygulanabilirdi.⁷ Literatürde CO₂ lazer kullanımı ile kür sağlanmış vakalar olmasına rağmen etkinliği %100 başarı sağlayan bir yöntem değildir.⁸ Alternatif olarak bu lezyonlara yönelik subperikondrial cilt rezeksiyonu da uygulanabilecek bir seçenek ancak bu tip cerrahi girişimlerin sonuçlarına dair literatürde kümülatif çalışmalar bulunmamaktadır. Hastamız tarafımızca önerilen cerrahi müdahaleyi mevcut risklerinden dolayı kabul etmemiştir.

Klinik olarak hastaların büyük kısmında en sık rastlanan semptomlar lezyonun bulunduğu alanda meydana gelen aşırı kaşıntı ve buna bađlı kanamadır. Sunulan vakanın takibi sırasında postoperatif erken dönemlerde, görünür lezyonlar olmamasına rağmen antihistaminik ve sistemik/lokal steroid tedavisine dirençli kaşıntı şikayetinin giderek arttığı ve ardından lezyonların belirginleştiđi saptanmıştır.

EALH sebebi tam olarak bilinmeyen inflamatuvar, nadir bir hastalıktır. Hastalığın kliniđi ve bulguları tipiktir. Histopatolojik inceleme hem tanı açısından hem de özellikle Kimura hastalığının ayırıcı tanısında önemlidir.

Literatürde genellikle dermatolojik vaka sunumu şeklinde sunulan bu nadir patolojiye yönelik deđişik tedavi yöntemleri belirtilse de hiçbiri kesin sonuç vermemektedir. Ancak, bu tip lezyonları, KBB

hekimi ile birlikte takip ederek, gerekli durumlarda eksizyonun planlanabileceği akılda tutulmalıdır.

Kaynaklar

1. **Abrahamson TG, Davis DA.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia responsive to pulsed dye laser. *J Am Acad Dermatol* 2003; 49: 195-6.
2. **Chung TS, Kim DK, Yoon MS, Yang WI.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia showing characteristics of Kimura's disease. *J Dermatol* 2000; 27: 27-30.
3. **Reguena L, Sanguenza OP.** Cutaneous vascular proliferation. Part II. Hyperplasias and benign neoplasms. *J Am Acad Dermatol* 1997; 37: 887-919.
4. **Suzuki H, Hatamochi A, Horie M, Suzuki T, Yamazaki S.** A case of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (ALHE) of the upper lip. *J Dermatol* 2005; 32: 991-5.
5. **Kung IT, Gibson JB, Bannatyne PM.** Kimura's disease: a clinicopathological study of 21 cases and its distinction from angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Pathology* 1984; 16: 39-44.
6. **Asadi AK.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Dermatol Online J* 2002; 8: 10.
7. **Metze D, Neumann R, Chott A.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Histologic study and successful therapy with the argon laser. *Hautarzt* 1991; 42: 101-6.
8. **Kaur T, Sandhu K, Gupta S, Kanwar AJ, Kumar B.** Treatment of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia with the carbon dioxide laser. *J Dermatolog Treat* 2004; 15: 328-30.

Bağlantı Çakışması:

Bağlantı çakışması bulunmadığı belirtilmiştir.

İletişim Adresi: Dr. Engin Açıoğlu

*İstanbul Üniversitesi Cerrahpaşa Tıp Fakültesi
KBB ve Baş Boyun Cerrahisi Anabilim Dalı
Samatya Fatih 34303 İSTANBUL
Tel: +90 212 414 30 00 / 21519
e-posta: drengin@hotmail.com*