

ЛАРИНГИАЛЕН ХЕМАНГИОМ

случаи от
клиничната
практика

Д. Вълев¹, Д. Костадинов¹, В. Кирков¹, М. Тафрадзийска¹, Я. Славова¹,
С. Иванова²

СБАЛББ „Св.София“, Медицински Университет – София¹

Клиника по обща и клинична патология, УМБАЛ „Александровска“,

Медицински Университет – София²

Резюме

Съдовите аномалии на органите на дишането са редки и протичат с нехарактерни симптоми. Хемангиомът е най-често срещания съдов тумор в областта на главата и шията. Хемангиомите са доброкачествени васкуларни аномалии, които се характеризират с доброкачествена пролиферация на кръвоносните съдове. Хемангиомите на ларинкса или трахеобронхиалното дърво се срещат изключително рядко. Представяме клиничен случай на рядка форма на ларингиален хемангиом и нейното ендоскопско лечение.

Ключови думи: задух, кашлица, дисфония, ларингиален тумор, хемангиом, ювенилен хемангиом

LARYNGEAL HEMANGIOMA

**D. Valev¹, D. Kostadinov¹, V. Kirkov¹, M. Tafrajiiska¹, Y. Slavova¹,
S. Ivanova²**

Specialized Hospital for Active Treatment of Pulmonary Diseases „St. Sofia”,
Medical University – Sofia¹

Department of Pathology, UMHAT “Alexandrovska”, Medical University – Sofia²

Abstract

Vascular anomalies which affect the organs of the respiratory system are rare and have unusual symptoms. Hemangiomas are the most common vascular tumors seen in the head and neck area. Hemangiomas are benign vascular anomalies characterized by benign proliferation of blood vessels. Laryngeal hemangiomas or hemangiomas of the tracheobronchial tree are very rare. We are presenting a clinical case of a very rare form of laryngeal hemangioma and its endoscopic treatment.

Key words: shortness of breath, cough, dysphonia, laryngeal tumor, hemangioma, juvenile hemangioma

Хемангиомите на ларинкса се разделят на ювенилни и хемангиоми при възрастни. Ювенилните се появяват няколко месеца след раждане в субглотиса и са животозастрашаващи, тъй като могат да доведат до обструкция на дихателните пътища и кръвоизливи. Такива лезии се откриват едновременно и на други места – кожа, кости, очи и в почти всички вътрешни органи.

По-голямата част ювенилните хемангиоми включват главата и шията. Те са рядкост в устната кухина, но може да се появят на езика, устните, устната лигавица, венците, лигавицата на небцето, слюнчените жлези, алвеоларния гребен, и челюстните кости (1, 2, 3, 4, 10).

Най-често се диагностицират чернодробните хемангиоми. Те са не-кистозно чернодробно увреждане, което може в някои случаи да създаде диагностични проблеми, особено в педиатричната практика (7).

Оралните хемангиоми са доброкачествени съдови лезии и са сравнително редки. Хистопатологичното изследване е задължително поради факта, че те имат сходни клинични и хистопатологични характеристики с много други доброкачествени и злокачествени тумори от съдов произход (6).

При възрастните хемангиомите се локализируют в супраглотиса. Най-често се дължат на злоупотреба с тютюнопушене, алкохол, нараняване (травма) на гласните връзки и ларинкса. Проявяват се с пресипналост (дрезгавост) на гласа и затруднение в дишането.

За първи път ларингеалният хемангиом е описан през 1871г. от Makenzi. През 1921 Sweetser за първи път разграничава субглотисен хемангиом при дете от супраглотисен при възрастен.

Макроскопски хемангиомите са мековати, варират по цвят от червени до синкави в зависимост от степента на кръвоснабдяване; могат да бъдат плоски или полипоидни.

Микроскопски хемангиомите се разделят на капилярни и кавернозни. Ювенилните са най-често капилярни, а при възрастните те са кавернозни. За разлика от капилярните, при кавернозните хемангиоми съдовите пространства са по-малко, но са по-големи и се намират по-дълбоко субмукозно. Забавеният кръвоток в тези зони може да доведе до организация на тромби и дистрофични калцификати в рамките на разширените съдови пространства.

Клиничен случай

Представяме 61 годишен бял мъж, с оплаквания от дисфония, напредващ инспираторно/експираторен задух, кашлица и оскъдна експекторация. Пациентът съобщава за начало на задуха преди повече от 2 години, постепенно напредващ, придружен от спадане на гласа. Постепенно се появява и суха дразнеща кашлица, и чувство за „чуждо тяло в гърлото“. Пациентът е консултиран и лекуван за бронхиална астма, без ефект. След проведена фи-

Laryngeal hemangiomas are two types – juvenile and adult hemangiomas. Juvenile hemangiomas (JH) are subglottic and occur a few months after birth. They are life-threatening because they may cause obstruction of the airways and bleeding. Such lesions are simultaneously found in other areas – skin, bones, eyes, and in almost all internal organs.

The majority of juvenile hemangiomas involve head and neck. They are rare in the oral cavity but can appear on the tongue, lips, oral mucosa, gums, palate mucosa, salivary glands, alveolar ridge, and jaw bones (1, 2, 3, 4, 10).

Liver hemangiomas are the most frequent ones. They are non-cystic liver lesions which can cause diagnostic problems in some cases, especially in the pediatric practice (7). Oral hemangiomas are benign vascular lesions and are comparatively rare. A histopathological examination is mandatory due to the fact that they have similar clinical and histopathological characteristics with a lot of other benign and malignant tumors of vascular origin (6).

In adults hemangiomas are located in the supraglottis area. Most often they are due to tobacco and alcohol abuse, trauma on the vocal cords and larynx. There is hoarseness of the voice and breathing difficulty.

Laryngeal hemangioma was first described in 1871 by Makenzi. In 1921 Sweetser first distinguishes between subglottic hemangioma in a child and supraglottic hemangioma in an adult.

Macroscopically, hemangiomas are soft tumors. They vary in color from red to bluish depending on the degree of blood supply. They can be flat or polypoid.

Microscopically, hemangiomas divide into capillary and cavernous. Juvenile hemangiomas are most often capillary, while adult hemangiomas are cavernous. Unlike capillary, in the case of cavernous hemangiomas the vascular spaces are fewer but larger, and are located deeper in the submucosa. The slow blood flow can lead to organization of thrombi and dystrophic calcifications within the wide vascular spaces.

Clinical case

We present a 61-year-old white man complaining of dysphonia, progressive inspiratory/expiratory dyspnea, cough and poor expectoration. The patient began feeling dyspnea more than 2 years ago, which was gradually progressive, accompanied by dysphonia. Also, there gradually appeared dry irritating cough and “the foreign body sensation in the throat”. The patient was consulted and treated for bronchial asthma without effect. After fibrobronchoscopy, a change in

бробронхоскопия се установява изменение в областта на ларинкса и пациентът е насочен за диагностично доуточняване, и терапия.

Извършеното бронхологично изследване под локална анестезия показва туморно образувание с приблизителни размери 0.7/1.0 cm, ангажиращо предна комисура на истински гласни връзки. Формацията е респираторно подвижна при фонация и респирация, с тъмносинкав оттенък и не кърви при контакт с фибробронхоскопа (фиг. 1).

Дистално подлежащите структури са интактни, със запазен релеф и анатомични съотношения (фиг. 2).

На следващ етап под обща анестезия с използване на ларингиална маска се извърши електрохирургична бримкова резекция (50W мощност) на туморното образувание (фиг. 3).

Патоморфологичната верификация показва картината на кавернозен хемангиом (фиг. 4).

Пациентът понесе манипулацията добре, липсваше дисфония и задух. На мястото на захващане остана малък дефект, неповлияващ респирацията и фонацията (фиг. 5). След един

the larynx was seen and the patient was directed to further specifying and therapy.

The bronchological examination under local anaesthesia showed tumor with approximate dimensions 0.7/1.0 cm, involving anterior commissure of true vocal cords. The formation is respiratory moving during phonation and respiration, with dark-bluish tint and it doesn't bleed during contact with the fibrobronchoscope (fig. 1).

The distal underlying structures are intact, with preserved surface and anatomical proportions (fig. 2).

At the next stage, under general anaesthesia, loop electro-surgical excision (power 50W) of the tumor was performed using laryngeal mask (fig. 3).

The pathomorphological verification showed the picture of cavernous hemangioma (fig. 4).

The patient underwent the manipulation well. There were no dysphonia and dyspnea. There is a small defect left at the place of forming which doesn't influence respiration and phonation (fig.

case presentations

LARYNGEAL HEMANGIOMA

Thoracic Medicine
Volume V, December 2013, Issue 4

Фиг. 1. Туморно образувание с приблизителни размери 0.7/1.0 cm, ангажиращо предна комисура на истински гласни връзки, с тъмносинкав цвят.

Fig. 1. Tumor with approximate dimensions 0.7/1.0 cm, involving anterior commissure of true vocal cords colored with dark-bluish tint.



Фиг. 2. Нормален ендоскопски образ на дистално подлежащите структури.

Fig. 2. Intact distal underlying structures.



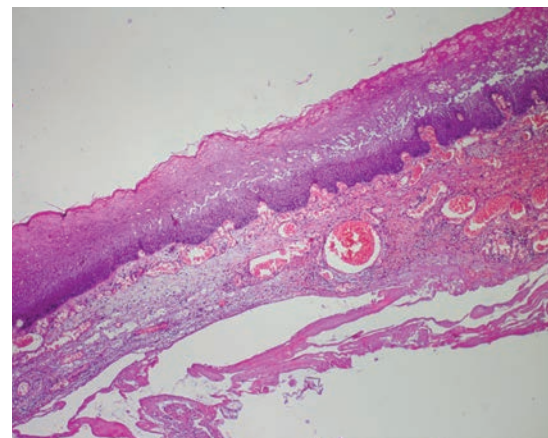
Фиг. 3. Електрохирургична бримкова резекция (50W мощност) на туморното образувание.

Fig. 3. The loop electro-surgical excision (power 50W) of the tumor.



Фиг. 4. Хистологична картина на кавернозен хемангиом.

Fig. 4. Histology – cavernous hemangioma.



месец болният се яви на контролен преглед, без субективни оплаквания. На фиг. 5 ясно личи мястото на захващане на кавернозният хемангиом по предна комисура.

Фиг. 5. Остатъчни промени след манипулацията – личи мястото на захващане на кавернозният хемангиом по предна комисура.
Fig. 5. Residual changes after the procedure – the place of formation of the cavernous hemangioma on anterior commissure is clearly seen.



Пациентът продължи терапията с Пропранолол в доза 2 mg/kg, без странични явления и добра поносимост. По желание на болния не се извършиха допълнителни хирургични намеси и той остана за динамично наблюдение.

Обсъждане

По литературатурни данни най-честата локализация на ювенилните хемангиоми (ЮХ) е в областта на шията и главата (5). Локализации в областта на хипофаринкса и ларинкса са изключително редки. Ранната хирургическа намеса може успешно и бързо да доведе до отлични резултати. В случаи когато хемангиома не подлежи на хирургично лечение (особено при вродено засягане на очите), терапията с Пропранолол може да има добро повлияване. Друга алтернатива е местно аплициране на стероид (9). Терапията на ЮХ е нелека задача. В терапевтичен план се използват орални кортикостероиди (ОКС) и пропранолол. Използването на Пропранолол се понася по-леко и качеството на живот е по-добро при пациенти с цервикофациален ЮХ (5).

Друга алтернатива в лечебен аспект е интралезионално инжектиране на 3% натриев тетрадецил сулфат, като склерозиращ агент при лицеви хемангиоми. Това е безопасно лечение с приемливи резултати. Склеротерапия с 3% натриев тетрадецил сулфат осигурява добра подготовка за друга хирургична намеса. Като тази техника предлага на пациента значително облекчаване на симптомите, с минимални усложнения (8). Tang и сътрудници (11) описват изследване при 11 деца със субглотична стеноза в следствие на хемангиома. Неоперативното лечение с пропранолол в доза 1 mg/kg на ден до третия ден, и 2 mg/kg дневно след шестия ден. Авторите описват подобряване дишането и увеличаване лумена на субглотисната стеноза – при стеноза от 3.9 на 5.0 mm, и от

5). After one month the patient came to an examination without having subjective complaints. On fig. 5 the place of formation of the cavernous hemangioma on anterior commissure is clearly seen.

The patient continued his therapy with propranolol (dose 2mg/kg), without side effects and having good tolerance. At the request of the patient, additional surgical interventions were not performed and he remained for dynamic observation.

Discussion

According to literature data the most common localization of the juvenile hemangiomas (JH) is the area of the neck and the head (5). The localizations in the area of the hypopharynx and the larynx are very rare. An early surgical intervention can successfully and quickly lead to excellent results. In the cases when the hemangioma can not undergo surgical treatment (especially in case of congenital eye involvement) the therapy with propranolol can have a beneficial influence. Another alternative is local application of a steroid (9). The therapy of JH is not an easy task. Oral corticosteroids (OCS) and propranolol are used as a therapy. The application of propranolol is tolerated more easily and the quality of life of patients with cervicofacial JH is better (5).

Another alternative treatment is intralesional administration of 3% sodium tetradecyl sulfate as a sclerosing agent in cases of facial hemangiomas. It's a safe treatment with acceptable results. The sclerotherapy with 3% sodium tetradecyl sulfate ensures good preparation for another surgical intervention. This technique gives the patient significant symptom relief, with minimal complications (8). Tang and assistants (11) report an examination of 11 children with subglottic stenosis as a result of the hemangioma. The non-surgical treatment is with propranolol dose of 1mg/kg daily until the third day and 2mg/kg daily after the sixth day. The authors report improvement in breathing and augmentation of the lumen of the subglottic stenosis from 3.9 to 5.0 mm, and from 1.5-2.0 mm in younger patients. 24-48 hours

1.5 на 2.0 mm при по-малки пациенти. След 24-48 часа от третирането, всички деца са имали подобрене на дишането, което бе потвърдено чрез фибро-ларингоскопия. Няма значими ЕКГ, кръвни и биохимични промени по време на лечението. Две от децата са имали хипогликемия при първата доза. При пет деца, лечението се спира след 6 до 11 месеца, поради бронхообструктивни симптоми. Нито едно от децата в тази група не е имало доказателства за рецидив. При пет деца, които са спрели лечение, нарастването на субглотичната стеноза е по-малко от 10% от диаметъра.

Won et al. (12), описват хемангиом ангажиращ фаринкса и достигащ до хранопровода, който би могъл да бъде погрешно диагностициран като варици. Този хемангиом е протичал асимптомно при 42 годишен мъж с разширени кръвоносни съдове в хранопровода, които са били случайно открит при ендоскопия. Подобни хемангиоми могат да причинят дрезгав глас, задух или дисфагия. Клиничното протичане на ювенилните и хемангиомите при възрастни е различно. То зависи от органа който е засегнат и степента на неговото засягане. В диференциално диагностично отношение хемангиомите трябва да се разграничават от телеангиектазии, от полип на гласните връзки и от разрастване на грануляционна тъкан в областта на гласните връзки.

Предпочитано лечение е лазерна ексцизия, терапия със стероиди и хирургична ексцизия, терапията с пропранолол и 3% натриев тетрадецил сулфат. Факторите, които определят избора на лечение, са възрастта, хистологичния вид (кавернозен, капилярен) и локализацията на тумора. Ювенилните могат да претърпят спонтанна регресия, но това не се наблюдава при хемангиомите у възрастни пациенти.

after treatment, all children had improvement in breathing which was confirmed with fibrolaryngoscopy. There are no significant ECG, blood and biochemical changes during the therapy. Two of the children were with hypoglycemia after the first dose. Five of the children stopped the therapy after 6 to 11 months due to broncho-obstructive symptoms. None of the children in this group had evidence for recurrence. Five of the children who stopped the therapy have enlargement of subglottic stenosis with less than 10% of the diameter.

Won et al. (12), report a hemangioma involving the pharynx and reaching the esophagus, which could be wrongly diagnosed as varices. This hemangioma developed asymptotically in 42-year-old man with dilated blood vessels in the esophagus, which were accidentally discovered during endoscopy. Such hemangiomas can cause hoarseness, dyspnea or dysphagia. The clinical course of the juvenile and adult hemangiomas is different. It depends on the organ which is affected and the degree of affection. In terms of differential diagnosis, hemangiomas must be distinguished from teleangiectasiae, from vocal cord polyp and from enlargement of the granulation tissue in the area of the vocal cords.

The preferable treatment is laser excision, steroid therapy and surgical excision, therapy with propranolol and 3% sodium tetradecyl sulfate. The factors which determine the treatment are age, histological kind (cavernous, capillary) and the location of the tumor. The juvenile hemangiomas have the potential for spontaneous regression but this is not observed in the cases of adult patients.

Книгопис:

References:

1. Dilsiz A., T. Aydin, and N. Gursan, "Capillary hemangioma as a rare benign tumor of the oral cavity: a case report," *Cases Journal*, vol. 9, no. 2, article 8622, 2009.
2. Enzinger F. M. and S.W Weiss, *Soft Tissue Tumors*, Mosby, St. Louis, Mo, USA, 5th edition, 2001.
3. Greene L. A., P.D. Freedman, J. M. Friedman, and M. Wolf, "Capillary hemangioma of the maxilla. A report of two cases in which angiography and embolization were used," *Oral Surgery Oral Medicine and Oral Pathology*, 1990, vol. 70, no. 3, pp. 268–273.
4. Gombos F., A. Lanza, and F. Gombos, "A case of multiple oral vascular tumors: the diagnostic challenge on haemangioma still remain open," *Judicial Studies Institute Journal*, 2008, vol. 2, no. 1, pp. 67–75.
5. Hermans DJ, Zweegers J, Evers AW, Van Der Vleuten CJ. *Eur J Dermatol*. 2013 Nov 4.
6. Hiremath SK, Charantimath S, Byakodi S, Bijjal S, Byakodi R, Sapra G. *Arch Iran Med*. 2013 Jul;16(7):428-30. doi: 013167/AIM.0013.
7. Klotz T, Montoriel PF, Da Ines D, Petitcolin V, Joubert-Zakeyh J, Garcier JM. *Diagn Interv Imaging*. 2013 Sep;94(9):849-59. doi: 10.1016/j.diii.2013.04.008. Epub 2013 Jun 21.
8. M K P, Koppal S, Rukmangada T, Byatnal AR. *BMJ Case Rep*. 2013 Oct 15;2013. pii: bcr2013200660. doi: 10.1136/bcr-2013-200660.
9. Mawn LA. *Am Orthopt J*. 2013;63:6-13. doi: 10.3368/aof.63.1.6.
10. Shafer W. G., M. K. Hene, and B. K. Levy, *A Textbook of Oral Pathology*, WB Saunders, Philadelphia, Pa, USA, 1983.
11. Tang LX, Zhang YM, Wang GX. *Zhonghua Er Bi Yan Hou Tou Jing Wai Ke Za Zhi*. 2012 Sep;47(9):735-8.
12. Won JW, Lee HW, Yoon KH, Yang SY, Moon IS, Lee TJ. *Dig Endosc*. 2013 Nov;25(6):626-9. doi: 10.1111/j.1443-1661.2012.01405.x. Epub 2012 Dec 6.

case presentations

LARYNGEAL HEMANGIOMA

Thoracic Medicine

Volume V, December 2013, Issue 4

Кореспонденция:

д-р Динко Вълев, главен асистент
СБАЛББ „Св.София“
Медицински Университет – София
Бул. "Акад. Иван Гешов" 19
1431 София

Correspondence:

Dinko Valev
Specialized Hospital for Active Treatment
of Pulmonary Diseases „St. Sofia“
Medical University, Sofia
Bul. "Acad. Ivan Geshov" 19
1431 Sofia

e-mail: dinko.g.valev@abv.bg