

Spinal Epidural Anjiolipoma: 3 Olgunun Sunumu

Spinal Epidural Angiolipoma: Report of Three Cases

ERHAN EMEL, FEYZA KARAGÖZ, H.SELİM KARABEKİR, NEŞE KESER

Vakıf Gureba Eğitim Hastanesi, Nöroşirürji Kliniği, İstanbul (EE, FK),
Özel Gebze Hastanesi, Kocaeli (HSK), Adapazarı Devlet Hastanesi (NK)

Geliş Tarihi: 15.12.2000 ⇔ Kabul Tarihi: 04.04.2001

Özet: Anjiolipoma genellikle ciltaltı dokusundan çıkan selim bir tümördür, omurilik kanalı içinde nadir görülür. Bildirilmiş olan 81 olgunun çoğunda tümör torakal bölgede ve omurilik kanalının arka-yan kısmında yerleşmiştir. Genellikle yavaş ilerleyen omurilik basısı belirti ve bulgularına neden olur. Nadiren tümör içine kanama ya da venöz tromboz sonucu hızlı kötüleşme bildirilmiştir. Spinal epidural anjiolipomalı üç olgu sunuldu. Olgularımızdan ikisinde tümör tipik olarak torakal bölgede kanalın arka kısmında yerleşmişti. Ancak bu iki olgudan biri tümör içine kanama sonucu hızlı gelişen nörolojik bulgularla başvurdu. Diğer olguda tümör sakral bölgede, kanalın ön-yan kısmındaydı ve hastada lomber disk hernisini taklit eden belirtilere neden olmuştu.

Anahtar Kelimeler: Anjiolipoma, spinal tümör

Abstract: Angiolipomas are benign tumors which usually arise from subcutaneous tissue, but they do occur rarely in the spinal canal. In most of reported 81 cases, tumors arise in the thoracic spine and are localized at the posterolateral region of the spinal canal. Most cases present with slowly progressive signs and symptoms of cord compression. Rarely, rapid neurological deterioration due to acute haemorrhage into the tumor or venous thrombosis has been reported. Three cases with spinal epidural angiolipomas were presented. In two of them, the tumors were typically localized in the thoracic levels and posterolateral region of the canal. But, one of them had presented with rapid neurological deterioration due to intratumoral hemorrhage. In the other patient, tumor was located in the sacral level and anterolateral region of the spinal canal and the patient had presented with signs and symptoms mimicking lumbar disc hernia.

Key words: Angiolipoma, spinal tumor

GİRİŞ

Anjiolipoma genellikle ciltaltında, adalelerde, kemiklerde, böbrekte görülen, omurilik kanalında nadiren ortaya çıkan selim bir tümördür (8,11,12). Omurga tümörlerinin %0.14'ünü oluşturduğu bildirilmişse de (19), Preul ve ark. (22) kendi kliniklerindeki omurga tümörlerinin %1.2'sinin anjiolipoma olduğunu saptamışlardır. Spinal epidural anjiolipoma genellikle torakal bölgede ve

omurga kanalının arka kısmında yerleşirse de (1,5,7,8,11,12,15,30), omurganın diğer bölgelerinde (12,19), kanalın ön kısmında (14,19,24,28) ya da dura içinde (20,22,27) yerleşmiş olgular da bildirilmiştir. Tümörün genellikle torakal yerleşmesi nedeniyle olguların çoğunda omurilik basısına ait klinik belirti ve bulgular ortaya çıkar (12,27). Çoğu zaman bulgular yavaş gelişir (20,22,25,30), ancak kanama, trombüs gelişmesi, kan çalma gibi nedenlerle hızlı kötüleşme olabileceği de bildirilmiştir (2,4,7,12,21).

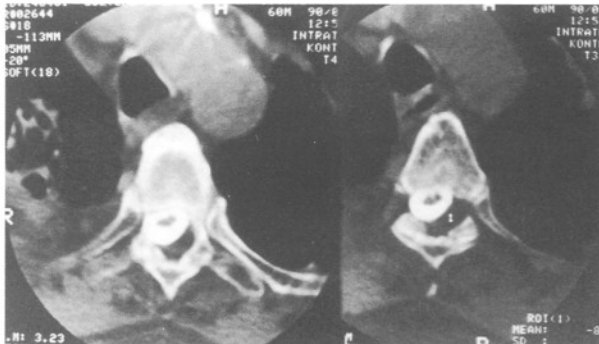
Howard ve Helwig'in klasik çalışmasında anjiolipomanın çevre dokuya infiltrasyon yapmayan bir tümör olduğu bildirilmişse de (8), Lin ve Lin (13) yayınlanmış yumuşak doku anjiolipomalarını incelediklerinde, bir kısmının infiltratif özellik taşıdığını ortaya koymuş ve bu tümörleri infiltratif ve noninfiltratif olarak iki gruba ayırmıştır. Daha sonra omurilik kanalında da infiltratif özellik gösteren olgular yayınlanmıştır (11,26).

Omurga anjiolipoması nedeniyle tedavi edilen üç olgu sunuldu. Olguların birinde tümör sakral düzeydeydi, kanalın ön-yan kısmında yerleşmişti ve lomber disk hernisini taklit eden klinik belirtilere neden olmuştu. Diğer iki olguda tümör torakal yerleşimliydi ve birinde spinal vasküler atak düşündürecek şekilde bacaklarda ani başlangıçlı güçsüzlük ve uyuşukluk ile sfinkter kusuruna neden olmuştu.

OLGU SUNUMU

Olgu 1: Elli altı yaşında erkek hasta 20 gün önce başlayan ve dinlenmekle hafifleyen sırt ağrısı, sağ bacakta uyuşma ve güçsüzlük yakınmalarıyla başvurdu. Nörolojik muayenede sağ ayak dorsal ve plantar fleksiyonunda 0/5, sağ diz fleksiyon ve ekstansiyonunda 3/5 kas gücüyle giden parezi, T6 düzeyinden başlayarak aşağıya doğru devam eden iki yanlı hipoestezi ve aşıl refleksinde iki yanlı kayıp saptandı, taban cildi refleksi iki yanda da ekstansör yanlıydı.

Direkt grafilerde özellik saptanmadı. Lomber ponksiyonla yapılan miyelografide T2 düzeyinde tıkanma izlendi. Miyelo-BT incelemesinde omurga kanalı içinde T2-4 düzeylerinde arka-sol yan epidural yerleşimli homojen bir kitle görüldü (Şekil 1). Kitle yağ dokusu, yumuşak doku ve sıvıyla uyumlu olabilecek dansitedeydi. T2-3 düzeylerine tam



Şekil 1: Olgu 1'in miyelo-BT incelemesinde torakal arka-yan yerleşimli epidural kitle.

laminektomi uygulandığında solda daha fazla olmak üzere her iki tarafa uzanan sarı-koyu kırmızı renkli tümörle karşılaşıldı. Tümör tam olarak çıkarıldı, girişim sonrası komplikasyon gelişmedi. Bir yıl sonraki izlemde hastanın nörolojik muayenesi normaldi ve 9 yıl boyunca nüks saptanmadı.

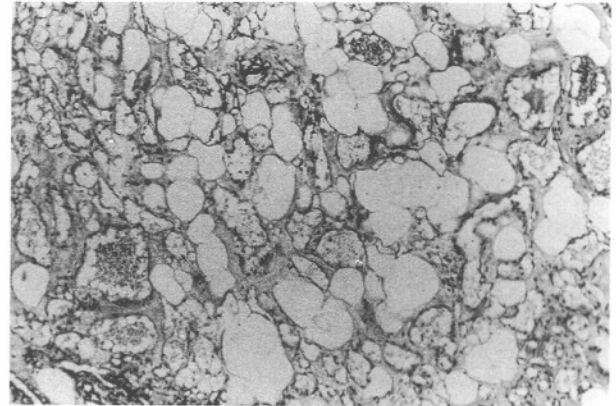
Alınan materyalin histolojik incelemesinde tümör dokusunun ince bir kapsülle çevrilmiş olarak farklı iki yapı içerdiği görüldü: Yer yer kapiller, yer yer kavernöz özellikte olan ince duvarlı damarsal boşluklar ve olgun yağ dokusu. Fibrosis, eski kanama alanı ya da mezenkimal yapı izlenmedi (Şekil 2).

Olgu 2: Otuz beş yaşında kadın hastanın beş yıldır bel ağrısı yakınması vardı. Romatizmal hastalık tanısı konan ve uygulanan tedavilerden yararlanmayan hastanın ağrısı 1.5 aydır artmıştı ve sağ bacağına yayılmaya başlamıştı. Nörolojik muayenede özellik saptanmadı.

Lomber BT incelemesinde L5-S1 düzeyinde kanalın ön-yan kısmında, dural keseyi arkaya iten, spontan hipodens, kontrast tutan bir kitle görüldü (Şekil 3). Manyetik rezonans görüntüleme (MRG) incelemesinde T1 (Şekil 4), T2 ve PD ağırlıklı çekimlerde hiperintens kitle görüldü. Tümör L5 ve S1 laminektomi ile tamamen çıkarıldı. Altı yıllık izlemde nüks saptanmadı.

Tümörün histopatolojik incelemesinde 1.olgudaki bulgular görüldü.

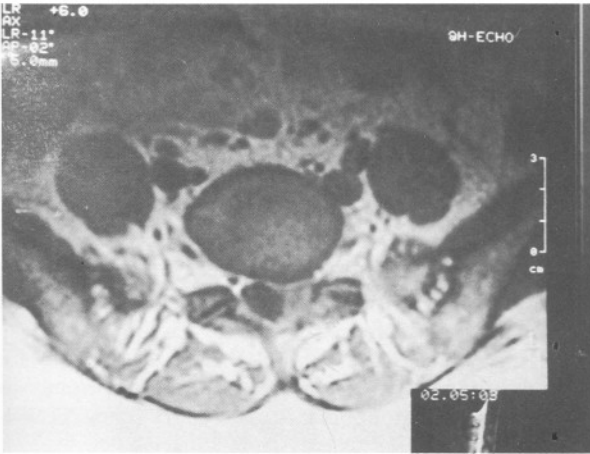
Olgu 3: Otuz bir yaşında erkek hasta dört gün öncesine kadar bir yakınması yokken bacaklarında ani başlayan güçsüzlük ve uyuşukluk ve idrar kaçırma yakınmalarıyla başvurdu. Nörolojik



Şekil 2: Olgu 1'de tümörün histopatolojik görünümü (HE, x125). Olgun yağ dokusu içine dağılmış ince duvarlı, değişik büyüklükte damar yapıları.



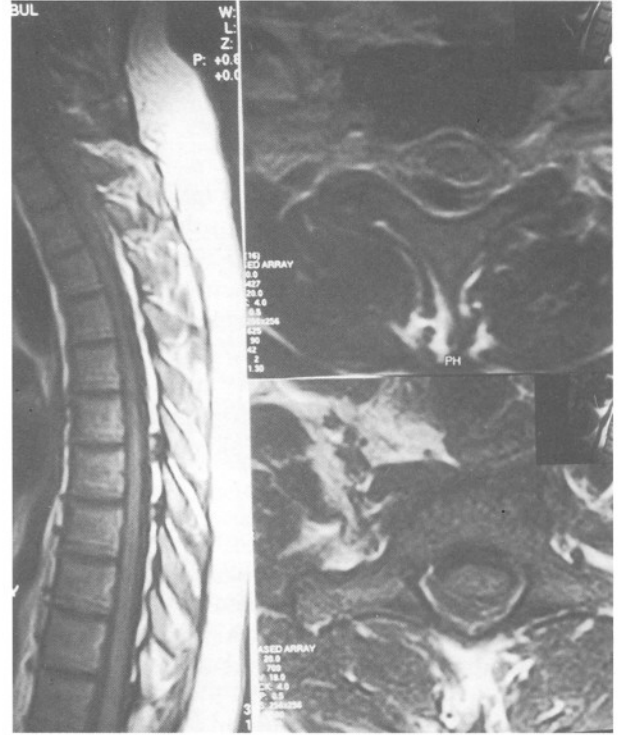
Şekil 3: Olgu 2'nin BT'sinde L5-S1 düzeyindeki ön-yan yerleşimli, intravenöz kontrastla belirgin ve homojen boyanma gösteren kitle.



Şekil 4: Olgu 2'nin T1 ağırlıklı aksiyal MRG kesitinde spontan hiperintens görünen kitle.

muayenede 2/5 kas gücüyle giden paraparezi ve T5 dermatomundan seviye veren hipoestezi saptandı. Derin tendon refleksleri kaybolmuştu ve üriner inkontinans vardı.

MRG incelemesinde T1-4 arasında akut dönemdeki kanamayla uyumlu olacak şekilde T1 ağırlıklı incelemede izo-hipointens, T2 ağırlıklı incelemede hipointens, 1.5 cm uzunluğunda epidural bir kitle görüldü (Şekil 5). T1-4 laminektomi ile sarısiyah renkli, kanamalı, süngersi görünümdeki kitle tam olarak çıkarıldı. Bacaklardaki parezi girişimden sonra 3.gün 4/5 kas gücüne ulaştı ve hasta destekle yürür hale geldi. Bir yıl sonraki izlemde nörolojik muayenede özellik yoktu. üçbuçuk yıllık izlemde nüks saptanmadı.



Şekil 5: Olgu 3'te sagittal ve aksiyal (sağ üst) T1 ve aksiyal T2 (sağ alt) kesitlerinde torakal posterior yerleşimli, erken dönemdeki kanama ile uyumlu kitle.

Histopatolojik inceleme bulguları diğer iki olguyla aynıydı.

TARTIŞMA

Spinal epidural anjiolipoma genellikle epidural alana yerleşen, iyi sınırlı selim bir tümördür (1-4,6,7,12,15-22,26-28,30). Tümör olgun lipomatöz ve anjiomatöz hücrelerden oluşur; tümörün içindeki damar yapıları küçük kapillerlerden, duvarında değişik oranda düz kas hücreleri bulunan büyük, düzensiz damar oluşumlarına kadar değişen görünümde olabilir (12,27). Bildirilmiş olgu sayısı oldukça azdır ve Turgut (27) 1999'a kadar yayınlanmış 74 olgu saptamış, bir olgu da kendi eklemiştir. Turgut'un çalışmasından sonra 6 olgu daha yayınlanmıştır (9,10,12,18). Sunduğumuz 3 olgu ile birlikte bildirilen olgu sayısı toplam 84 olmuştur. Bu olguların 4'ü intramedüller, diğerleri epidural yerleşimli tümörlerdir.

Spinal epidural anjiolipoma genellikle torakal düzeylerde ve omurga kanalının arka ve arka-yan bölgelerinde yerleşir (1,5,7,8,11,12,15,30). Bu yerleşim

nedeniyle olguların çoğu omurilik basısı belirti ve bulgularıyla başvurur. Olgularımızdan birinde tümör sakral düzeyde ve kanalın ön-yan kısmında yerleşmişti ve lomber disk hernisine benzer belirti ve bulgularla başvurmuştu.

Tümör yavaş geliştiğinden olguların çoğunda belirtilerin uzun süredir bulunduğu ve yavaş ilerlediği bildirilmiştir (20,22,25,30). Nadiren, son olgumuzda olduğu gibi, kanama, trombus ya da kan çalma fenomenine bağlı olarak belirti ve bulgularda hızlı ilerleme ortaya çıkabilir (2,4,7,12,21). Öge ve ark. (18) bildirdikleri olgunun hızlı nörolojik kötüleşmesinden vazodilatatör ilaçların neden olduğu tümör kan hacmindeki artışı sorumlu tutmuşlardır.

Spinal epidural anjiolipoma olgularında en değerli tanı yöntemi MRG'dir (9,12,14,21,23,29,30). Tümör kontrastsız BT'de hipodens görünümü nedeniyle kolaylıkla epidural yağ dokusuyla karıştırılabilir ve gözden kaçabilir (29). Ama intravenöz kontrastlı BT'de hipodens alanın genellikle belirgin kontrast tuttuğu saptanır (Şekil 3). MRG'de yağ içeriği nedeniyle tipik olarak T1 ağırlıklı incelemede izo-hiperintens, T2 ağırlıklı incelemede hafif hiperintens görülür (Şekil 4) (14,23,29). Provenzale ve McLendon (23) üç olguda T1 ağırlıklı incelemede tümörlerin epidural yağ dokusuna göre daha hipointens görüldüğünü bildirmişse de, T2 ağırlıklı incelemede tümörün epidural yağ dokusundan ayrımı daha güçtür ve kontrastsız incelemede kolaylıkla yağ dokusuyla karışıp gözden kaçabilir. O'Donovan böyle bir olgu bildirmiştir (17). Oysa intravenöz kontrastlı MRG incelemesinde tümörün belirgin ve homojen boyandığı görülür (14,23,29). Son olgumuzda olduğu gibi, tümörden kanama tipik MRG görünümünün kaybolmasına neden olur; bu durumda kanamanın yaşıyla uyumlu bulgular saptanır (Şekil 5) (12).

Tümörün genellikle omurga kanalının arka kısmında yerleşmesi laminektomi ile çıkarılmasını kolaylaştırır. Ancak nadir de olsa, önde yerleşmiş olgularda anterior girişim gerekebilir (24,28). Labram ve ark.(12) göğüs boşluğu içine uzanan büyük bir servikotorakal kitle için hem arkadan, hem önden iki aşamalı bir girişim uygulamıştır. Kitlenin tamamen çıkarılmasının olguların çoğunda nörolojik bulguların hızla düzelmesini sağladığı bildirilmiştir (8,12,15,18,27). Bir olgumuzda tümör kanalın ön-yan kısmında yerleşmişse de, sakral düzeyde olduğundan laminektomi ile tamamen çıkarılabilmektedir. Girişim öncesi nörolojik bulgusu

olan iki olgumuzun muayeneleri 1 yıl ve 6 ay sonraki izlemlerde normal bulunmuştur.

SONUÇ

Nadir bir tümör olan ve genellikle torakal bölgede ve omurilik kanalının arka-yan kısmında yerleşen spinal epidural anjiolipoma yavaş ilerleyen omurilik ya da kök basısı belirti ve bulgularına neden olursa da, kanama, venöz tromboz gibi nedenlerle hızlı nörolojik kötüleşmeye de yol açabilir. Nadiren lomber bölgede, kanalın ön-yan kısmında yerleşerek lomber disk hernisini taklit edebilir. Belirgin yağ içeriği sayesinde MRG ile kolaylıkla tanı konabilen bu tümörün dikkatli yapılmayan bir incelemede epidural yağ dokusu ile karışıp gözden kaçabileceği unutulmamalıdır. Tümör içine kanama da tümörün tipik MRG görünümünü değiştirerek tanı zorluğuna neden olabilir.

Yazışma Adresi: Dr.Feyza Karagöz
Cömertkent Sitesi F Blok D 23 34010
Tozkoparan İstanbul
Telefon: 212/5346900/1512
Faks: 212/6217580

KAYNAKLAR

- Balbo RJ, Araujo JF, Melro CA, Iafigliola MG, Valvassore FR: Thoracic epidural angioliipoma. Report of a case. Arch Neurol Psychiatry 53: 659-661, 1995
- Boockvar JA, Black K, Malik S, Stanek A, Tracey KJ: Subacute paraparesis induced by venous thrombosis of a spinal angioliipoma: A case report. Spine 22:2304-2308, 1997
- Bouramas D, Korres DS, Roussos L, Mantzilas T, Anagnostopoulos D: Spinal extradural angioliipoma. J Spinal Disord 8:324-327, 1995
- Cull DJ, Erdohazi M, Symon L: Extradural hemangioliipomas in the spinal canal. Two cases presenting during pregnancy. Acta Neurochir 45:187-193, 1978
- Ehni G, Love JG: Intraspinallipomas. Report of cases and review of the literature and clinical and pathological study. Arch Neurol Psychiatry 53:1-28, 1945
- Griebel RW, Khan M, Rozdilinsky E: Spinal extradural angioliipoma: case report and literature review. Spine 11:47-48, 1986
- Haddad FS, Abla A, Allam CK: Extradural spinal angioliipoma. Surg Neurol 26:473-486, 1986
- Howard WR, Helwig EB: Angioliipoma. Arch Dermatol 82:624-931, 1960
- Klisch J, Spreer J, Bloss HG, Baborie A, Hubbe U: Radiological and histological findings in spinal intramedullary angioliipoma. Neuroradiology 41:584-587, 1999

10. Kujas M, Lopes M, Lalam TF, Fohanno D, Poirier J: Infiltrating extradural spinal angioliipoma. Clin Neuropathol 18:93-98, 1999
11. Kuroda S, Abe H, Akiro M, Iwasaki Y, Nagashima K: Infiltrating spinal angioliipoma causing myelopathy: case report. Neurosurgery 27:315-318, 1990
12. Labram EK, El-Shunnar K, Hilton DA: Spinal angioliipoma-three additional cases. Br J Neusurg 13:25-29, 1999
13. Lin JJ, Lin F: Two entities in angioliipoma. A study of 459 cases of lipoma with review of literature on infiltrating angioliipoma. Cancer 34: 720-727, 1974
14. Mascalchi M, Arnetoli G, Dal Pozzo G: Spinal epidural angioliipoma: MR findings. AJNR 12:744-745, 1991
15. Michilli R, Tzonos P, Iglesias-Rozas JR: Spinal extradural angioliipoma: case report and literature review. Neurochirurgia 36:63-65, 1993
16. Miki T, Oka M, Shima M, Hinofuji E, Tanaka S: Spinal angioliipoma: a case report. Acta Neurochir 58:115-119, 1981
17. O'Donovan NA, Naik K, Maloney WJ, Llewellyn CG: Spinal angioliipoma mimicking extradural lipomatosis. Can Assoc Radiol J 47:51-53, 1996
18. Oge HK, Söylemezoğlu F, Rousan N, Özcan OE: Spinal angioliipoma: Case report and review of literature. J Spinal Disord 12:353-356, 1999
19. Pagni CA, Canavero S: Spinal extradural angioliipoma: rare or unreported? Neurosurgery 31:758-769, 1992
20. Palkovic S, Wassman H, Bonse R, Kashab M: Angioliipoma of the spinal cord. Surg Neurol 29:243-245, 1988
21. Pearson J, Stellar S, Feigin I: Angiomyoliipoma: long-term cure following radical approach to malignant-appearing benign intraspinal tumor. Report of three cases. J Neurosurg 33:466-470, 1970
22. Preul MC, Leblanc R, Tampieri D, Robitaille Y, Pokrupa R: Spinal angioliipomas: report of three cases. J Neurosurg 78:280-286, 1993
23. Provenzale JM, McLendon RE: Spinal angioliipomas: MR features. AJNR 17:713-719, 1996
24. Sakaida H, Waga S, Kojima T, Kubo Y, Matsubara T, Yamamoto J: Thoracic spinal angiomyoliipoma with extracanal extension to the thoracic cavity. A case report. Spine 23: 391-394, 1998
25. Stranjalis G, Jamjoom A, Torrens MJ: MRI in the diagnosis of spinal extradural angioliipoma. Br J Neurosurg 6:481-483, 1992
26. Trabulo A, Cerqueira L, Monteiro J, Roque P, Reis FC, Coelho MR: Spinal angioliipomas revisited: two case reports. Acta Neurochir (Wien) 138:1311-1319, 1996
27. Turgut M: Spinal angioliipomas: Report of a case and review of the cases published since the discovery of the tumour in 1890. Br J Neurosurg 13:30-40, 1999
28. van Hanwher R, Apuzzo MLJ, Ahmadi J, Chandrosoma P: Thoracic spinal angioliipoma: case report and literature review. Neurosurgery 16:406-411, 1985
29. Weill A, del Carpio-O'Donovan R, Tampieri D, Melanson D, Ethier R: Spinal angioliipomas: CT and MR aspects. J Comput Assist Tomogr 15:83-85, 1991
30. Yamashita K, Fuji T, Nakai T, Hamada H, Kotoh K: Extradural spinal angioliipoma: report of a case studied with MRI. Surg Neurol 39:49-52, 1993