

ANJİOLENFOİD HİPERPLAZİ (KİMURA HASTALIĞI) OLGU SUNUMU

ANGIOLYMPHOID HYPERPLASIA : CASE REPORT

Etem BEŞKONAKLI, Erhan COŞAN, Hakan SEÇKİN, Yıldız YALÇINLAR, Fehmi AKSOY.

Ankara Numune Hastanesi II. Nöroşirürji Kliniği (EB, EC, HSY) ve Patoloji Lab. (FA)

Türk Nöroşirürji Dergisi 2 : 73-75, 1991

ÖZET : Eozinofili ile birlikte anjiolenfoid hiperplazi (Kimura Hastalığı), sıklıkla genç erişkinlerde görülen, nadir, benign vasküler tümürlendir. Baş ve boyun bölgesi sık tutulur. Genellikle subkütan olarak görülmesine rağmen, kliniğimizde takip ve tedavi edilen vakada skalp altından perikraniuma kadar ulaştığı ve birlikte frontal kemikte kranium içine doğru hiperostoz olduğu görüldü. Makalede, vaka literatür bilgileri ile birlikte tartışılmıştır.

Anahtar Kelimeler : Kimura Hastalığı, Skalp, Bilgisayarlı tomografi, Anjiolenfoid hiperplazi.

SUMMARY : Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (Kimura Disease) is a rare benign vascular tumor affecting principally the head and neck region of young adults. Although the nodules lie mainly in the subcutis, the patient's lesion extended from subcutis to deeply into the temporal muscle and pericranium. There is also hyperostosis of the frontal bone into the cranial cavity. In this paper, clinical and radiological findings are described and literature reviewed.

Key Words : Kimura Disease, Scalp, Computed tomography, Angiolymphoid hyperplasia.

GİRİŞ

Anjiolenfoid hiperplazi, ilk olarak 1948 yılında Kimura ve arkadaşları tarafından tanımlanmıştır. Baş ve boyun bölgesinde sık görülen bu benign vasküler tümör uzun yıllar Kimura Hastalığı adıyla isimlendirilmiştir (14). Lezyon baş ve boyun bölgesinde sık görülmesine karşın, son yıllarda vücudun diğer kısımlarında da görüldüğüne dair raporlar yazılmıştır (6,7,8,19,21,22,25,26,29). Literatürde benzer bulgular, birçok değişik ad altında yayımlanmıştır. İsimlendirme konusu hala tartışmalıdır (3,5,12,13,14,15,18,22,23,28,30,31). Baş bölgesinde yerleşim yeri skalp ve subkütandır. Vakalar genellikle uzak doğuda yaşayanlar veya orada bir süre bulunmuşlarda görülmektedir. Son yıllarda etyoloji, tanı teknikleri ve tedavi yolları ile ilgili çalışmalar yapılmıştır (6,8,10,11,16,19,20,23).

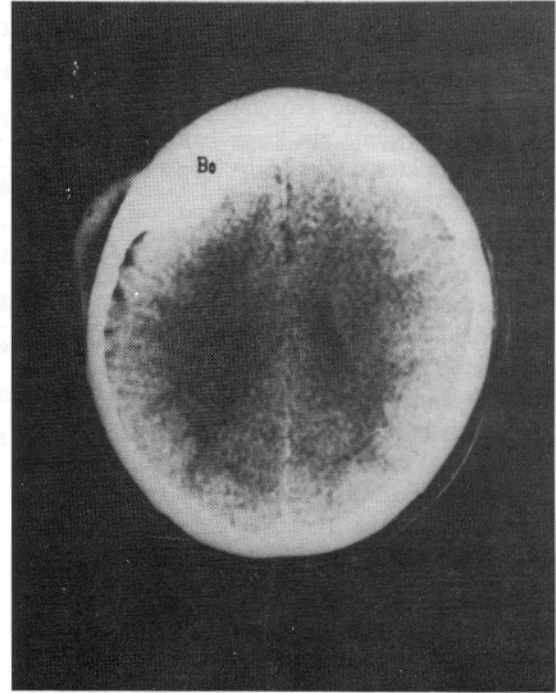
Kliniğimizde takip ve tedavi edilen bir vaka dolayısıyla ile, nöroşirürji literatüründe nadir rastlanan bu hastalık, skalp ve ekstrakranial kitle ayırıcı tanısında düşünülebileceği için sunulmuştur.

OLGU SOLUNUMU

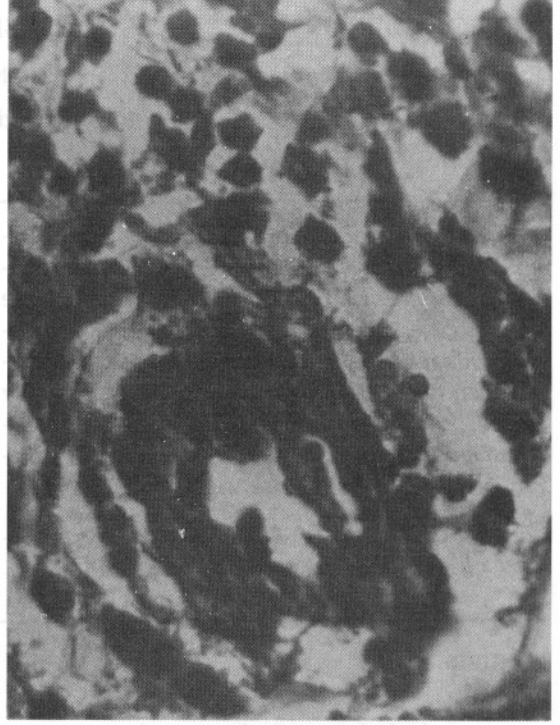
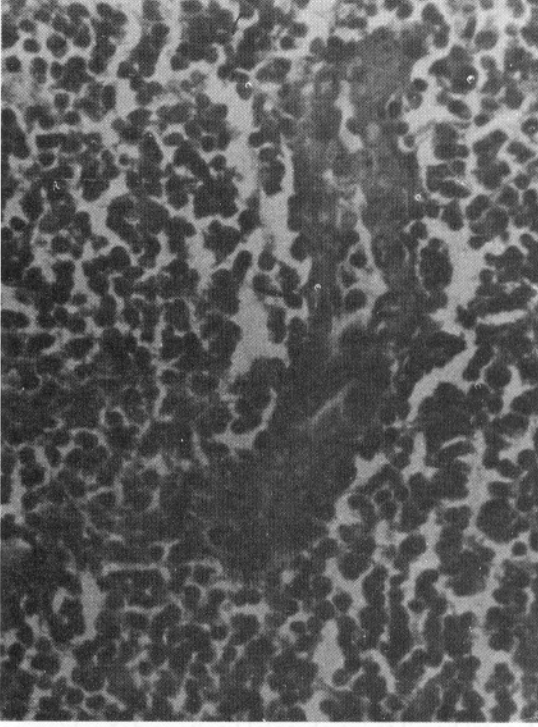
M.A. 28 yaşında erkek. Sol fronto-temporal bölgede ciltaltı kitle şikayeti ile başvuran hasta, skalp kitlesi ön tanısı ile yatırıldı. Kitlenin 8 ay önce fark edildiği ve zamanla büyüdüğü öğrenildi. Öz ve soy geçmişinde özellik yoktu.

Hastanın sistemik ve nörolojik muayenesi normal bulundu. Biokimyasal tetkiklerinde %6 eozinofili tespit edildi. Lokal olarak sol zigoma üzerinde fronto-temporal alana uzanan 6x8 cm boyutlu ciltaltı immobil kitle tespit edildi.

Direkt kafa grafilerinde sol frontal dansite artımı görüldü. 5 ay önce çektiği olduğu bilgisayarlı tomografide (CT) sol temporo-frontal ciltaltı kitle ve sol frontal kemikte intrakranial kaviteye doğru hiperostoz mevcuttu (Şekil-1).



Şekil 1 : BBT'de ciltaltı kitle ve frontal hiperostozis görünümü



Şekil 2 A ve B : Şişkin endotel hücreleriyle döşeli damar yapıları (HEx100)-(HEx200).

Sol karotid anjiyografi normal değerlendirildi.

Hasta Mayıs 1990 tarihinde opere edildi. Kitlenin ciltaltından temporal kası geçerek perikraniyuma kadar uzandığı görüldü. Frozen malign olarak bildirildi. Kitlenin zigoma altı kısmı hariç rezektü edildi. Frontal kemikten duraya kadar biopsi alınıp, operasyona son verildi.

Histopatolojik değerlendirilmesinde doku kesitlerinde fibrokollajenize bağ dokusu ile ayrılmış, lobüler yapıda lezyonun ve lezyon içinde yuvarlak-oval nükleusu, eozinofilik sitoplazmalı epitelooid görünümde endotel hücreleri ile döşeli çok sayıda damar yapıları izlendiği bildirildi. Bu damar yapılarının çevresinde mononükleer iltihabi hücreler, plazma hücreleri, seyrek eozinofiller, germinal merkezleri belirgin lenfoid folliküllerin yaygın bulunduğu ve sonuçta patolojinin Anjiolenfoid Hiperplazi (Kimura Hastalığı) olduğu rapor edildi (Şekil-2A ve 2B). Kemik biopsisi normaldi.

Hastaya postoperatif yapılan ultrasonografide sol parotis yüzeysel lobda da 1-1.5 cm lik multipl nodüller bulundu. Hasta ek tedavi verilmeden taburcu edildi. Kontrollerde operasyon yerinde nüks görülmedi. Ancak kontrol ultrasonografide parotis üzeri nodüllerin 3. ayda kaybolduğu, 6. ayda ise bir miktar büyüyerek devam ettiği görüldü. Hasta ek müdahale yapılmadan halen takip edilmektedir.

TARTIŞMA

Eozinofili ile birlikte anjiolenfoid hiperplazi, baş ve boyun bölgesinde subkütan nodüllerle karakterize nadir görülen benign vasküler bir tümördür (5,18,22,29). Baş ve boyun dışında ekstremiteler ve yumuşak dokularda daha az sıklıkla bulunmaktadır (7,8,18,22,24,25). Özellikle böbrek hastalıklarıyla birlikte bazı vakalar da bildirilmiştir (8,15,19,21,29).

Hastalık ilk olarak Kimura ve arkadaşlarınınca tanımlanmıştır (14). O zamandan beri aynı klinik bulguları içeren vakalar değişik isimler altında yayımlanmıştır. 1969 yılında Wells ve Whimster ilk olarak Subcutaneous Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia terimini kullanmıştır (28).

Vakalarda hemen hemen benzer bulgular bulunduğu için, iki terimin farklı hastalıkları mı tanımladığı, yoksa aynı hastalığın farklı isimlendirilmesi mi olduğu tartışmalıdır (1,2,3,4,5,9,12,13,15,17,18,22,23,28,30,31).

Ancak benzerliklerin daha fazla olması nedeniyle çoğu vakada birlikte anılmaktadır.

Hastalık genellikle genç erişkinde cins ayrımı olmadan, baş ve boyunda sık olmak üzere subkütan, daha az olarak ekstremiteler ve yumuşak dokularda da görülmektedir. Vaka benign olmasına rağmen, aktif

faz sırasında yanlış olarak anjiosarkom tanısı alabilmektedir (28).

Vakamızda lezyon ciltaltından fascia ve kası geçerek periosta kadar uzanmaktaydı. Lezyon bir veya daha fazla nodül içerebilir ve boyutları 1-10 cm arası olabilir. Çoğu vakada kan eozinofilisi dışında sistematik bulgu yoktur. Vakamızda da %6 eozinofili mevcuttu (Normali %1-3). Ancak vakadaki frontal kemik hiperostozu (biopsi normal kemik dokusu) unilateral hiperostozis frontalis interna olarak değerlendirilmiştir.

Son yıllarda yapılan immün çalışmalarında IgE ve mast hücreleri araştırılmış, lezyonlarda yüksek oranlarda bulunmuştur. Eozinofili, IgE artması, vakaların uzak doğu kökenli olması nedeniyle allerjik-immün hastalık, insekt sokması, parazit enfestasyonu araştırılmış kesin sonuç bulunamamıştır (6,9,10,15,16,18,26).

Tedavide cerrahi eksizyon, radyoterapi, steroid veya bunların kombinasyonu kullanılmaktadır. Nadiren spontan iyileşme görülmüştür (7,9,11,18,20,21,22,24,25,28,29).

Sunulan vakada sadece cerrahi eksizyon uygulanmış ve ek tedavi verilmeden kalan lezyonların 3. ay kontrollerinde kaybolduğu, 6. ay kontrolünde ise, parotis üzeri nüks olduğu görülmüştür. Ancak müdahalesiz takibine devam edilmektedir.

Yazışma Adresi : Dr. Etem BEŞKONAKLI
Numune Hastanesi II. Nöroşirurji Kliniği
Tel : 310 30 30 / 505 ANKARA

KAYNAKLAR

1. Al-Jitawi S, Oumeish OY: Angiolymphoid hyperplasia with tissue eosinophilia. *Int J Dermatol* 28:114-118, 1989
2. Chan JK, Hui PK, Ng CS et al: Epithelioid Haemangioma and Kimura Disease in Chinese. *Histopathology* 15:557-74, 1989
3. Dannekar C, Pilacquadro D, Willoughby CB, Goltz RW: Histiocytoid Hemangioma. *J Am Acad Dermatol* 21:404-409, 1989
4. Eady RAJ, Wilson-Jones E: Pseudo Pyogenic Granuloma: Enzyme Histochemical and ultrastructural study. *Human Pathol* 8(6):653-668, 1977
5. Enzinger FM, Weiss SW: Soft tissue tumors. Toronto: The C.V. Mosby Co. 1988 pp 502-507
6. Hallam LA, Mc Kinley GA, Wright AM: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: Possible aetiological role for immunisation. *J Clin Pathol* 42:944-949, 1989
7. Hazen PG, Carney CF, Evangelista E: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Cutis* 44:147-150, 1989
8. Horie S, Ishiyama T, Sugimoto M et al: Eosinophilic lymphofolliculosis (Kimura's Disease) complicated with aortitis syndrome. *Rinsho Ketsueki* 30:396-9, 1989
9. Hui PK, Chan JK, Ng CS et al: Lymphadenopathy of Kimura Disease. *Am J Surg Pathol* 13:177-86, 1989
10. Isoda M: Eosinophilic chemotactic factor in tumor tissue from a patient with Kimura's Disease. *Br J Dermatol* 118:599-603, 1988
11. Itami J, Arimuzu N, Miyoshi T et al: Radiotherapy in Kimura's Disease. *Acta Oncol* 28:511-4, 1989
12. Kandil E: Dermal angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia versus pseudopyogenic granuloma. *Br Dermatol* 83:405-8, 1970
13. Kawada A, Takahashi H, Anzai T: Eosinophilic lymphofolliculosis of the skin. *Jpn J Dermatol* 76:61-72, 1965
14. Kimura T, Yoshimura S, Ishikawa E: Unusual granulation combined with hyperplastic change of lymphatic tissue: *Trans Soc Pathol Jpn* 37:179-80, 1948
15. Kuo TT, Shih LY, Chan HL: Kimura's disease involvement of regional lymph nodes and distinction from angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: *Am J Surg Pathol* 12: 843-54, 1988
16. Masuda A, Kazajima T, Mori N, Oka K: Immunohistochemical study of low affinity Fc receptor for IgE in reactive and neoplastic follicles. *Clin Immunopathol* 53:309-20, 1989
17. Mehregan AH, Shapiro L: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Arch Dermatol* 103:50-57, 1971
18. Moesner J, Pallasen R, Sorensen B: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Arch Dermatol* 117:650-3, 1981
19. Motsumoto K, Katayama H, Hatano M: Minimal-change nephrotic syndrome associated with subcutaneous eosinophilic lymphoid granuloma (Kimura's Disease): *Nephron* 49:251-4, 1988
20. Pettinato G, Insabato L, De Chiara A, et al: Fine needle aspiration cytology of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: *Diag Cytopathol* 5:88-94, 1989
21. Qunibi WY, Al-Sibai MB, Akhtar M: Mesangio-proliferative glomerulonephritis associated with Kimura's Disease. *Clin Nephrol* 30:111-14, 1988
22. Reed RJ, Terazakis N: Subcutaneous angioblastic lymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Cancer* 29:489-97, 1972
23. Rosai S, Gold J, Landy R: The histiocytoid hemangiomas. *Human Pathol* 10:707-30, 1979
24. Ruckenstein MS, Birt BD, Grus JS: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: *Otolaryngol* 18:236-40, 1989
25. Sherer SB, Custer PL, Smith ME: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of the orbit associated with obstructive airway disease: *Am J Ophthalmol* 108:167-9, 1989
26. Smith DL, Kincaid MC, Nicolitz E: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (Kimura's Disease) of the orbit. *Arch Ophthalmol* 106:793-5, 1988
27. Smith JR, Hadgis C, van Hassel A: CT of Kimura's Disease *AJNR* 10:543-6, 1989
28. Welles GC, Whimster IW: Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Br J Dermatol* 81:1-15, 1969
29. Whelan TV, Maher JF, Kragel P et al.: Nephrotic syndrome associated with Kimura's Disease. *Am J Kidney Dis*. 11:353-6, 1988
30. Wilson-Jones E, Bleeher SS: Pseudo or atypical pyogenic granuloma: *Br J Dermatol* 81:804-816, 1969
31. Winer LH, Levin GH: Acquired vascular tumours of the skin in the adult: *Arch Derm* 79:17-31, 1959