

NÁHLE VZNIKLÉ POLYKACÍ POTÍŽE JAKO PRVNÍ PROJEV SUBLINGUÁLNÍHO KAVERNÓZNÍHO HEMANGIOMU

prof. MUDr. Vladimír Mihál, CSc.¹, MUDr. Kamila Michálková², MUDr. David Horák²,
MUDr. Josef Pokorný³, doc. MUDr. Ivo Stárek, CSc.³, doc. MUDr. Pavel Majer, CSc.⁴,
MUDr. Arnošt Brázda, CSc.⁴, MUDr. Ladislava Kučerová⁵, MUDr. Milada Dušková, M.I.A.C.⁵,
MUDr. Oldřich Marek⁶

¹Dětská klinika LF UP a FN Olomouc, ²Radiologická klinika LF UP a FN Olomouc,

³Otorinolaryngologická klinika LF UP a FN Olomouc,

⁴Klinika ústní, čelistní a obličejové chirurgie LF UP a FN Olomouc,

⁵Ústav patologie LF UP a FN Olomouc, ⁶Klinika anesteziologie a resuscitace LF UP a FN Olomouc

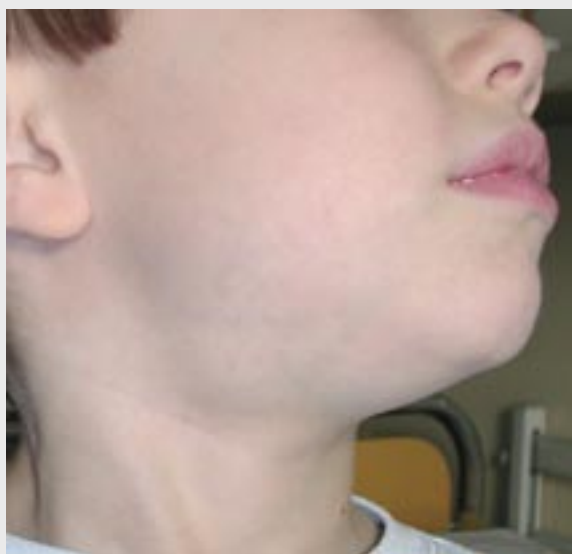
Vaskulární tumory jsou nejčastější tumory slinných žláz a u dětí v první dekádě života tvoří kolem 40 % všech neepiteliálních nádorů slinných žláz. Pouze 40 % hemangiomů obvykle roste ve vlastní žláze a až 60 % v jejím blízkém okolí. Mohou být přítomny už při narození, ale do konce prvního roku dochází většinou k jejich spontánní regresí. Periglandulárně se vyskytující hemangiomy, které pronikají do přilehlých struktur, jsou z klinického hlediska nebezpečné pro svůj nepředvídatelný charakter. Prezentována je kazuistika sedmiletého chlapce s náhle vzniklými polykacími potížemi při zduření pravé podčelistní oblasti. Po doplňujícím vyšetření (USG, MR, punkční cytologie) byl ohraničený cystický útvar společně s podčelistní slinnou žlázou chirurgicky odstraněn a histologicky uzavřen jako kavernózní hemangiom. Autoři diskutují objektivní potíže, které se vyskytly při diagnóze cystického útvaru nejasné etiologie.

Kazuistika

Sedmiletý chlapec ze čtvrtého těhotenství (dvakrát spontánní potrat) byl plně kojený osm měsíců, očkován podle kalendáře, nemocnost byla velmi malá. Byl v evidenci alergologické ordinace pro alergii na kočičí srst, roztoče a penicilinová antibiotika. Oba rodiče i starší sestra jsou zdraví.

Pro subfebrilie, palpačně citlivou hladkou rezistenci pod úhlem dolní čelisti vpravo a asi dva dny trvající polykací potíže byl pacient vyšetřen na ORL ambulanci FN Olomouc. Patrové oblouky byly symetrické, tonzily hypertrofické s ojedinělými bělavými povlázky, bez zarudnutí. Na spodině ústní vpravo fialové vyklenutí. Na krku vpravo submandibulárně hmatná hladká, měkká a citlivá rezistence velikosti asi 3 cm (obrázky 1 a 2).

Obrázek 1. Hladká rezistence velikosti 3 cm pod úhlem mandibuly vpravo



Ultrasonografické vyšetření (vyšetřeno před punkcí) prokázalo submandibulárně vpravo oválný útvar s okrsky kolikvace, velikosti 44×18 mm tlačící na submandibulární žlázu, v okolí byla patrná výrazná hypervaskularizace. Slinné žlázy byly oboustranně bez odchylek. Při diagnostické **punkci útvaru spodiny ústní** bylo odsáto asi 10 ml tmavé krve a bylo vysloveno podezření na hemangiom spodiny ústní. Následující den bylo dítě přijato na Dětskou kliniku FN Olomouc k dokončení plánovaných vyšetření.

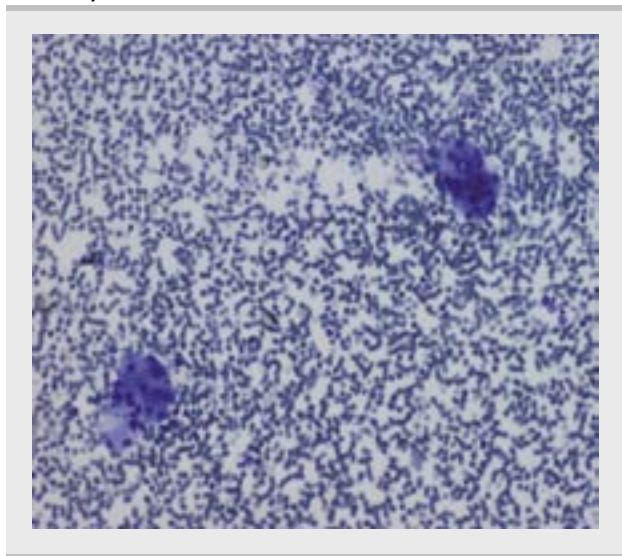
Laboratorní vyšetření: Hb 133 g/l, erytrocyty $4,74 \times 10^{12}/l$, leukocyty $12,80 \times 10^9/l$, trombocyty $288,0 \times 10^9/l$, aPTT 22,6 s, Quick 70 %, moč+sediment fyziologický nález, α -amyláza 1,77 $\mu\text{kat}/l$ (0,47–1,67), pankreatická amyláza 0,5 $\mu\text{kat}/l$

Obrázek 2. Zduření plica sublingualis vpravo s modře prosvítající submandibulární žlázou



(0,01–0,53), index amylázy 28,2 % (0–50), urea 3,7 mmol/l, kreatinin 56 µmol/l, ALT 0,27 µkat/l, AST 0,47 µkat/l, c-GMT 0,17 µkat/l, bilirubin 11,8 µmol/l, CRP <3,0 mg/l. Při punkci tenkou jehlou (obrázek 3) byl cytologický nálezn tvořen převážně erytrocyty, malou příměsí lymfocytů a drobnými skupinami buněk s jemně granulovanou cytoplazmou a kulatými jádry klidového vzhledu, které mají charakter spíše epitelii slinné žlázy než resorpčních makrofágů. Vyšetření cystického útvaru magnetickou rezonancí (MR) (obrázky 4, 5, 6): vpravo na vnitřní straně ramene mandibuly a sublinguálně byl prokázán útvar velikosti

Obrázek 3. Cytologický nátěr, barveno Giemsou, zvětšení 100×: v nátěru přítomná převaha erytrocytů spolu s ojedinělými skupinkami epitelálních buněk slinné žlázy.

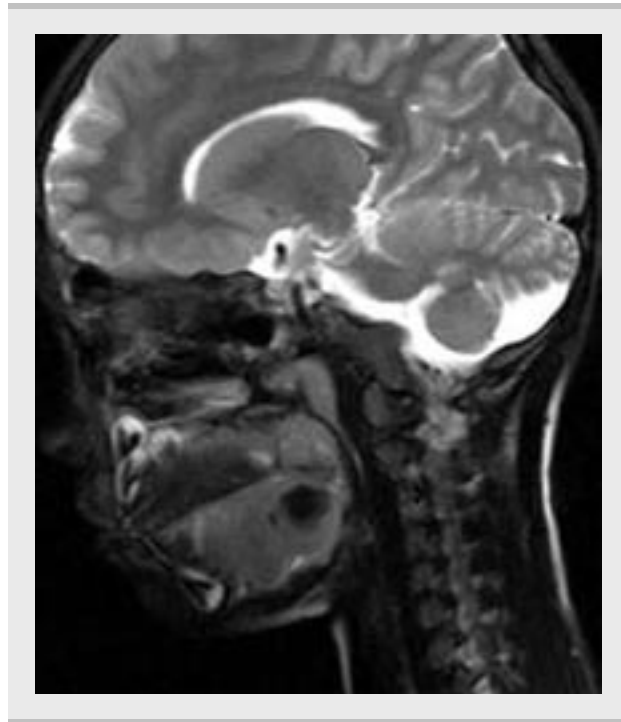


Obrázek 4. T1 vážený obraz v sagitální rovině po podání paramagnetické kontrastní látky i. v. (spin-echo). Sytí se jen tenký lem na okraji léze, uvnitř je patrný hypointenzní obsah bez známek pokontrastního syčení.



asi 4×2×3 cm, který je relativně dobře ohraničený, utlačuje okolní měkké struktury, ale nepůsobí destrukci či tlakové změny skeletu, na který naléhá. Útvar odtlačuje submandibulární slinnou žlázu. V T2 obrazech však bylo možné de-

Obrázek 5. T2 vážený obraz s potlačením signálu tukové tkáně (fat saturation) v sagitální rovině, technika rychlého spinového echa. Na povrchu léze patrná jemná hypersignální „slupka“ korespondující s postkontrastně se sytícím lemem. Obsah středních intenzit (izointenzní), asignální defekt dorzálně (v obou typech obrazů) odpovídá postpunkčně vzniklé bublině vzduchu vs.



Obrázek 6. T2 vážený obraz v koronární rovině s potlačením tuku: sublingvální resp. para-submandibulární lokalizace léze s těsným vztahem k submandibulární slinné žláze, která je dislokována.



tekovat hyposignální okrasek v centru útvaru a nekonstantní hypersignální lem na povrchu útvaru. Po aplikaci paramagnetické kontrastní látky i. v. měl útvar charakter abscesového ložiska – sytil se jen tenký periferní lem. Dále byla prokázána oboustranně mírná krční lymfadenopatie.

Závěr: Útvar nemá charakter hemangiomu, lze uvažovat o abscesu, centrální ložisko může odpovídat čerstvé kr-

Obrázek 7. UZ vyšetření podčelistní krajiny vpravo zachycuje hypoechogenní homogenní ostře ohraničený útvar (cysta) a ventrolaterálně od něj hyperechogenní podčelistní slinnou žlázu.



Obrázek 8. Při transorální UZ zobrazení je útvar hypoechogenní, jemně pravidelné struktury, oválného tvaru, ostře ohraničen.



Obrázek 9. Submandibulárně uložený homogenní hypoechogenní útvar s hladkými konturami, při CFM jsou patrné cévní struktury při jeho okraji (světlé skvrny na pravé straně obrázku, šipka)



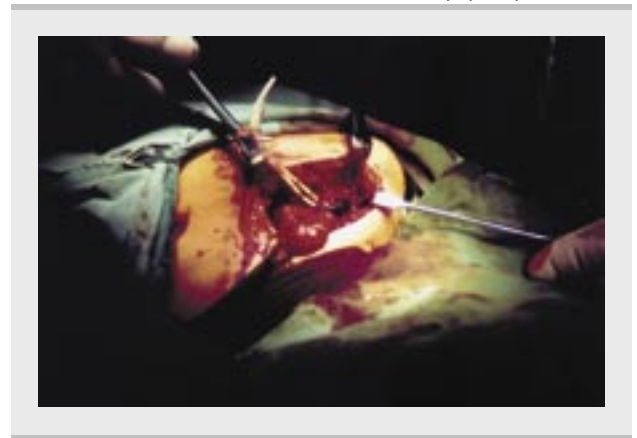
vi po punkci, TU ložisko nelze jednoznačně vyloučit, přestože signálové charakteristiky obsahu léze nejsou typické pro centrální nekrózu.

Ultrasonografické vyšetření (obrázky 7, 8, 9): Transorálně sublinguálně vpravo je dobře zobrazitelný útvar velikosti asi 40×22 mm, ostře ohraničený, homogenní hypoechogenní, při Dopplerovském vyšetření bez prokrvení, jsou přítomny ojediněle cévní struktury ve stěně útvaru. Pod dolní čelist vpravo se vyklenuje submandibulární žláza přiměřené velikosti, ke které útvar dosahuje a vytlačuje ji dopředu a kaudálně.

Závěr: cystický útvar se zahuštěným obsahem vpravo sublinguálně šířící se submandibulárně – patrně cysta pravé podjazykové žlázy. Po stomatologickém konziliárním vyšetření (Klinika ústní, čelistní a obličejové chirurgie FN Olomouc), které potvrdilo zduření plica sublingualis vpravo s modře prosvítající sublinguální žlázou (obrázek 2), ze které proces pravděpodobně vychází, byla doporučena stomatochirurgická intervence – exstirpace cystického útvaru.

Stomatochirurgická operace: V submandibulárním prostoru byla izolována žláza, na kterou kranálně a mediálně nasedá široce fixovaný cystický útvar, který má velmi jemné pouzdro a prosvítá modře. Poměrně dobře se jej daří izolovat od okolí (obrázek 10). Velmi intenzivně adheru-

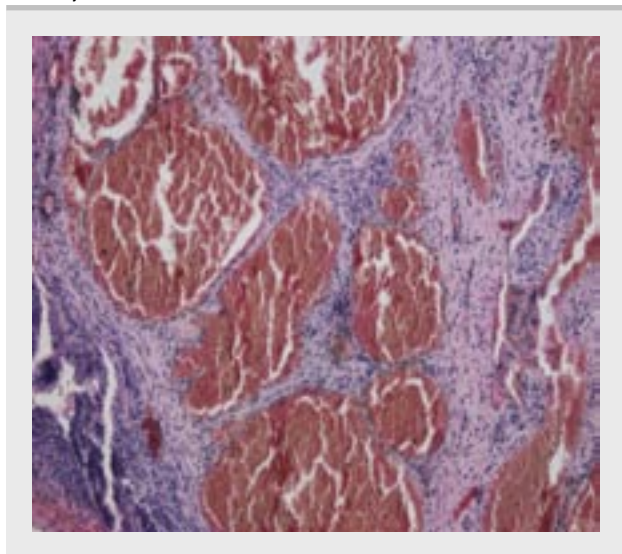
Obrázek 10. Peroperační nález: v podčelistním prostoru vpravo izolovaná slinná žláza, na kterou kranálně nasedá široce fixovaný cystický útvar.



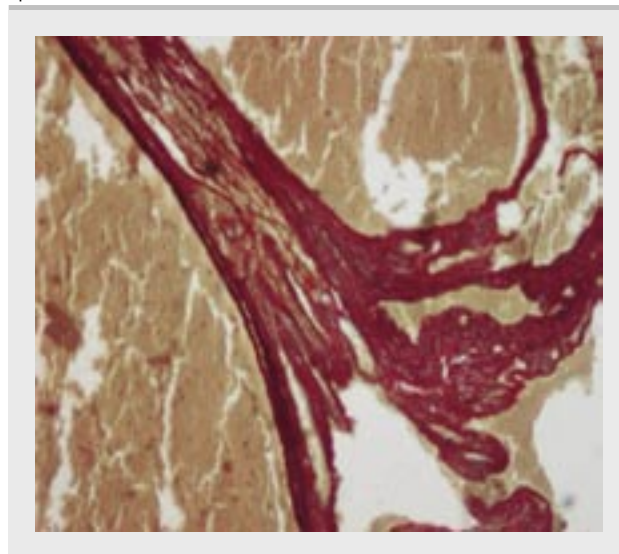
Obrázek 11. Pooperační nález: exstirpovaná podčelistní slinná žláza s cystickým útvarem (kavernózní hemangiom) s jemným pouzdem.



Obrázek 12. Kavernózní hemangiom, barveno HE, zvětšení 100×. Zachycena je stěna jednotlivých kavernózních prostor tvořena vazivem, septa jsou tenká, v lumen je krev.



Obrázek 13. Kavernózní hemangiom, barveno speciálně na přítomnost vaziva, zvětšení 100×. Vazivová stěna hemangiomu je znázorněna červeně, v lumen opět krev.



je na n. hypoglossus, který se dost těžce podařilo bez jeho přerušení uvolnit. Byla extirpována submandibulární žláza i s cystickým útvarem (obrázek 11). Pooperační průběh nebyl ničím komplikován, třetí den byl odstraněn Redonův drén a sedmý pooperační den byl chlapec v dobrém celkovém stavu propuštěn domů.

Histologické vyšetření (obrázky 12, 13): Kavernózní hemangiom, stěna jednotlivých kavernózních prostor je tvořena vazivem, septa jsou tenká, v lumen je krev.

Diskuze

Vaskulární tumory jsou nejčastější tumory slinných žláz u dětí (histologicky nejčastěji hemangiomy: kapilární ve 30 %, kavernózní v 60 % a smíšené typy v 10 %), v první dekádě života tvoří kolem 40 % všech neepiteliálních tumorů slinných žláz (1, 2, 4, 5). Až 60 % hemangiomů roste v blízkém okolí slinných žláz. Periglandulárně rostoucí hemangiomy, které pronikají do přilehlých struktur, jsou z klinického hlediska nebezpečné a pro svůj nepředvídatelný charakter označované jako alarmující hemangiomy (3).

Náhle vzniklé polykací potíže u našeho pacienta lze hypoteticky vysvětlit buď nástupem regresivního procesu uvnitř hemangiomu (v histologických preparátech některé

kaverny vyplněny krevními sraženinami), nebo zvětšením objemu tenkostěnné nádorové kaverny při zvýšení tlaku v cévním řečišti. Transorální punkce, po které bylo získáno 10 ml krve, sice podpořila správnost pracovní diagnózy sublinguálního hemangiomu, ale zřejmě i pozměnila nálezy histologických a doplňujících zobrazovacích vyšetření. Určité diagnostické rozpaky při interpretaci USG a MR nálezů (neprůkaznost sept) mohly být zapříčiněny i typem kavernózního hemangiomu (Dopplerovský ultrasonografický obraz kapilárních hemangiomů je jiný – má zcela charakteristický obraz). Kdyby původ erytrocytů v cytologickém obraze nebyl vysvětlován možnou arteficiální kontaminací, mohla i punkce tenkou jehlou přispět ke správné diagnóze. Nález epiteliálních buněk slinné žlázy v cytologickém nálezu lze vysvětlit „nechtěnou“ punkcí těsně náležající podčelistní slinné žlázy k hemangiomu. Zřetelnému fialově-modrému zbarvení sublinguálního cystického útvaru, které popsali kolegové na ORL při iniciálním vyšetření a které po odsátí 10 ml krve již nebylo tak zřetelné, jsme mohli/měli přisoudit větší diagnostický význam.

Dobré a zřetelné ohraničení útvaru, které bylo patrné ze všech zobrazovacích vyšetření (MR, USG) a potvrzeno i peroperačně, usnadnilo jeho nekomplikované stomatochirurgické odstranění.

Literatura

1. Adzick NS, Strome M. Cryotherapy of subglottic hemangioma. J pediatr Surg, 1984; 19: 353–357.
2. Brown RL, Azizkhan RGA: Pediatric head and neck lesions. Ped Clinics North Am, 1998; 45: 889–905.
3. Enjoras O, Riche M., et al. Management of alarming hemangiomas of infancy: a review of 25 cases. Pediatrics, 1990; 85: 491–498.

4. Justová E, Pazdera J, Mihál V. Systémová terapie interferonem alfa 2 u nemocných s nádory z vazoformativní tkáně a infantilní fibromatózy. Cesko-Slov Pediat, 1998; 53: 28.
5. Justová E, Pazdera J, Mihál V. Contemporary possibilities of treating vasoformative tissue tumours. Acta Univ Palacki Olomuc Fac Med, 2000; 143: 37–42.