

Λεμφαγγειακή δυσπλασία με εντόπιση στον μασητήρα μυ. Παρουσίαση περίπτωσης

Ανυ ΟΓΚΑΝΙΑΝ¹, Νικόλαος ΚΕΧΑΓΙΑΣ², Λάμπρος ΖΟΥΛΟΥΜΗΣ³

Κλινική Στοματικής & Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής, Α.Π.Θ. και Γ.Π.Ν. Θεσσαλονίκης «Γ. Παπανικολάου»
(Διευθυντής: Καθ. Κ. Αντωνιάδης)

Lymphatic malformation in the masseter muscle. Case report

Any OGANIAN, Nikolaos KECHAGIAS, Lambros ZOULOUMIS

Oral and Maxillofacial Surgery Clinic, Dental School, Aristotle University of Thessaloniki and "G. Papanikolaou"
General Hospital. Thessaloniki, Greece.
(Head: Professor K. Antoniadis)

Ενδιαφέρουσα περίπτωση
Case report

ΠΕΡΙΛΗΨΗ: Εισαγωγή: Οι λεμφαγγειακές δυσπλασίες είναι αρκετά σπάνιες καλοήθεις βλάβες που προέρχονται από τον λεμφικό ιστό και εμφανίζονται σε όλο το σώμα. Στο μεγαλύτερο ποσοστό τους (75% περίπου), εμφανίζονται στην περιοχική της κεφαλής και του τραχήλου με συχνότερη ενδοστοματική εντόπιση την γλώσσα. Συνήθως ανευρίσκονται εγκαίρως, μέχρι την ηλικία των 2 ετών και παρουσιάζουν την ίδια συχνότητα στα δύο φύλα. Η αντιμετώπισή τους είναι η χειρουργική τους εξαίρεση.

Περιγραφή περίπτωσης: Παρουσιάζεται περίπτωση ασθενούς 43 ετών με λεμφαγγειακή δυσπλασία στην παρειά αριστερά, η οποία αφαιρέθηκε χειρουργικά με ενδοστοματική προσπέλαση. Η περίπτωση έχει ενδιαφέρον λόγω της εντόπισης της δυσπλασίας εντός του μασητήρα μυ, αλλά και της προχωρημένης ηλικίας της ασθενούς για διάγνωση ανάλογης βλάβης.

ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ: Λεμφαγγειακή δυσπλασία, μασητήρας μυς, χειρουργική αντιμετώπιση.

SUMMARY: Introduction: Lymphatic malformations are rather rare benign lesions that can occur anywhere in the human body originating from the lymphatic system. The vast majority of these lesions (approximately 75%) develop in the head and neck region, with the tongue being the most common intraoral site of occurrence. They are usually identified early, during the first two years of an individual's life, with both genders being equally affected. Their surgical removal is the treatment of choice.

Case report: the case of a 43-year-old female patient with a lymphatic malformation within the left cheek is presented. Treatment was surgical removal with an intraoral approach. The importance of this case lies in the rare occurrence site of the lymphatic malformation, inside the masseter muscle, as well as in the patient's age, which was above what is typically reported in this type of lesions.

KEY WORDS: lymphatic malformation, masseter muscle, surgical procedure.

¹Οδοντίατρος
²Στοματικός & Γναθοπροσωπικός Χειρουργός
³Καθηγητής ΣΠΠΧ Α.Π.Θ.

Παρελήφθη: 06/03/2013 - Έγινε δεκτή: 15/07/2013

Paper received: 06/03/2013 - Accepted: 15/07/2013

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Οι λεμφαγγειακές δυσπλασίες είναι καλοήθεις βλάβες του λεμφικού ιστού, στην πλειονότητά τους συγγενείς, που κατατάσσονται στις αγγειακές δυσπλασίες (Mulliken & Glowacki, 1982, Kaban και Mulliken, 1986).

Οι λεμφαγγειακές δυσπλασίες ανάλογα με το μέγεθος των δομών που τις αποτελούν, που προσομοιάζουν στα λεμφαγγεία, ταξινομούνται σε μακροκυστικές (με σχηματισμούς $> 2\text{cm}^3$), μικροκυστικές (με σχηματισμούς $< 2\text{cm}^3$) και μικτές (Giguère και συν. 2002, Amouri και συν. 2007, Grasso και συν. 2008). Οι δυσπλασίες του τραχήλου είναι συνήθως μακροκυστικές ενώ οι ενδοστοματικές είναι μικροκυστικού τύπου (Schoinohoriti και συν. 2012).

Στην πλειοψηφία των περιπτώσεων (50% - 90%), εμφανίζονται σε παιδιά από την ηλικία των 2 έως 5 ετών, ενώ η εμφάνισή τους ή η διάγνωσή τους σε άτομα μεγαλύτερης ηλικίας είναι σπάνια (Giguère και συν. 2002, Brennan και συν. 1997, Kim και συν. 2007, Grasso και συν. 2008). Αν και οι λεμφαγγειακές δυσπλασίες μπορούν να εμφανιστούν σε οποιοδήποτε σημείο του δέρματος ή του βλεννογόνου, το 75% εμφανίζεται στην περιοχή της κεφαλής και του τραχήλου (Kim και συν. 2007, Grasso και συν. 2008, Schwartz και Patel, 2009). Ενδοστοματικά εντοπίζονται συνήθως στη γλώσσα και ακολουθούν η παρειά, τα χείλη και η υπερώα (Αγγελόπουλος και συν. 2000, Schoinohoriti και συν. 2012).

ΠΕΡΙΓΡΑΦΗ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Ασθενής, γυναίκα 43 ετών, προσήλθε στα εξωτερικά ιατρεία της κλινικής ΣΓΠΧ για την εξέταση μορφώματος με εντόπιση την αριστερή παρειά. Στην ψηλάφηση υπήρχε μάζα εντός των ιστών της παρειάς, αντίστοιχα με τον μασητήρα μυ, μπροστά από τον κλάδο της κάτω γνάθου. Είχε σκληροελαστική σύσταση, ήταν ευκίνητη και ανώδυνη, με διαστάσεις 10-15mm, χωρίς στοιχεία αιμορραγίας ή έλκους στον βλεννογόνο. Σε υπερηχογράφημα της αριστερής υπογνάθιας και τραχηλικής χώρας, που είχε γίνει προ 2 ετών, είχε καταγραφεί υπόηχο ωοειδές μόρφωμα στην παρειά ενώ δεν υπήρχαν διογκωμένοι τραχηλικοί λεμφαδένες. Στο παρελθόν είχε επίσης γίνει κυτταρολογική εξέταση καθώς και βιοψία, οι οποίες ήταν αρνητικές για κακοήθεια, χωρίς άλλη πληροφορία. Η βλάβη ήταν περισσότερο αισθητή από την ασθενή τους τελευταίους 6 μήνες.

Προγραμματίστηκε η χειρουργική βιοψία-εξαίρεση της βλάβης υπό τοπική αναισθησία, με ενδοστοματική προσπέλαση. Έγινε ευθεία τομή στον βλεννογόνο της παρειάς κατά μήκος της ουλοπαρειαικής αύλακας αντίστοιχα με τους προγόμφιους και γομφίους, που επεκτάθηκε προς τον κλάδο της κάτω γνάθου (Εικ. 1). Ακολούθησε παρασκευή των ιστών γύρω από το μόρφωμα, με ιδιαίτερη μέριμνα για την αποφυγή τραυματισμού μυϊκών ινών του μασητήρα μέσα στην μάζα του οποίου

INTRODUCTION

Classified as vascular malformations, lymphatic malformations are benign lesions of the lymphatic system, which are mostly congenital (Mulliken and Glowacki, 1982, Kaban και Mulliken, 1986).

Depending on the size of the vesicle-like structures they comprise, lymphatic malformations can be divided into macrocystic (involving structures larger than 2cm^3), microcystic (with structures smaller than 2cm^3) and mixed ones (Giguère et al. 2002, Amouri et al. 2007, Grasso et al. 2008). Cervical malformations are usually macrocystic, while intraoral ones are mostly microcystic (Schoinohoriti et al. 2012).

The majority of lymphatic malformations (50% - 90%) occur in children between 2 and 5 years old, while their development or diagnosis in older individuals is rare (Giguère et al. 2002, Brennan et al. 1997, Kim et al. 2007, Grasso et al. 2008). Even though lymphatic malformations can occur in any part of the skin or mucosa, 75% of them develop in the head and neck region (Kim et al. 2007, Grasso et al. 2008, Schwartz and Patel, 2009). Intraorally, their most common site of occurrence is the tongue, followed by the cheek, the lips and the palate (Schoinohoriti et al. 2012).

CASE REPORT

A 43-year-old female patient presented to the outpatient department of the OMFS Clinic to have a formation in her left cheek examined. Palpation revealed a mass within the buccal tissues, in the area corresponding to the masseter muscle, anterior to the mandibular ramus. The formation was firm and elastic, while it was mobile and painless, 10-15mm in size, with no elements of bleeding or ulceration of the mucosa. In an ultrasound examination of the left submandibular and cervical areas that had been undertaken 2 years earlier, a hypoechogenic oval formation in the cheek had been recorded while no swollen cervical nodes had been identified. Moreover, both a cytological examination and a biopsy that had been carried out in the past had been found to be negative for malignancy, providing no further information. Over the past 6 months, the lesion in question had become more noticeable by the patient.

An intraoral surgical excision- biopsy under local anesthesia was scheduled. The approach was via a straight incision into the buccal mucosa, along the gingivobuccal fold, in the area corresponding to the pre-molars and molars, extended towards the mandibular ramus (Fig 1). Tissues around the lesion were dissected with care to prevent any injuries to the muscular fibers of the masseter, whose body included the formation in question. The lesion was excised in its entirety (Fig 2) followed by tissue suturing with simple interrupted



Εικ. 1: Τομή στον παρειαικό βλεννογόνο και παρασκευή των ιστών.
Fig. 1: Incision of the buccal mucosa and tissue dissection.

βρισκόταν το μόρφωμα. Η βλάβη αφαιρέθηκε στο σύνολό της (Εικ. 2) και ακολούθησε η συρραφή της τομής με απλή διακεκομμένη ραφή. Το μετεγχειρητικό οίδημα ήταν μικρό και τα ράμματα αφαιρέθηκαν μετά από 8 ημέρες.

Μακροσκοπικά επρόκειτο για ωοειδές μόρφωμα διαστάσεων 10x18mm με ινοελαστική σύσταση (Εικ. 3). Ιστολογικά αποτελείτο από αναστομωμένους αγγειακούς χώρους, ποικίλου μεγέθους, με λεπτό τοίχωμα, ενώ η εσωτερική τους επιφάνεια επαλειφόταν από ένα στίχο ενδοθηλιακών κυττάρων, με προσεκβολές αυτού εντός του αγγειακού χώρου, χωρίς ατυπίες. Στο εσωτερικό των αγγειακών χώρων σε λίγες θέσεις διακρίνονταν ερυθρά αιμοσφαίρια, ενώ στοιχεία κακοήθειας δεν παρατηρήθηκαν. Τέθηκε η διάγνωση μικροκυστικής λεμφαγγειακής δυσπλασίας, ενδομυϊκής εντόπισης (Εικ. 4 και 5). Η ασθενής παρακολουθείται τακτικά για έγκαιρη διάγνωση πιθανής υποτροπής.

ΣΥΖΗΤΗΣΗ - ΣΥΜΠΕΡΑΣΜΑΤΑ

Οι αγγειακές δυσπλασίες αναπτύσσονται σε ποικίλη έκταση και βάθος εντός των ιστών. Η εντόπισή τους σε βαθύτερα στρώματα μπορεί να καθυστερήσει την διάγνωσή τους και αυτή να γίνει όταν αυξηθούν σε διαστάσεις και δημιουργήσουν λειτουργικά προβλήματα όπως μεγαλογλωσσία (Brennan και συν. 1997, Αγγελόπουλος και συν. 2000).

Η αύξηση των διαστάσεων των λεμφαγγειακών δυσπλασιών μπορεί να ενεργοποιηθεί μετά από τραυματισμό, φλεγμονή, ενδοκρινολογικές μεταβολές ή λεμφαγγειακή απόφραξη (Giguère και συν. 2002, Amouri και συν. 2007, Grasso και συν. 2008). Στην αναφερόμενη περι-



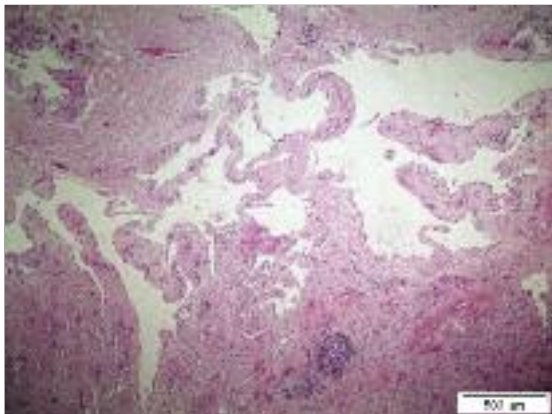
Εικ. 2: Παρασκευή της μάζας και αφαίρεσή της
Fig. 2: Mass dissection and removal from inside the masseter muscle.

sutures. Postoperative oedema was limited, and the sutures were removed 8 days later.

Macroscopically, the excision was an oval formation of fibroelastic composition, 10x18mm large (Fig. 3). Histologically, it included thin-walled anastomosing vascular spaces of varied sizes, whose internal surface was covered with a layer of endothelial cells, projecting into the vascular space, with no atypias. Inside those vascular spaces, red blood cells were found at a few spots, while no elements of malignancy were identified. A diagnosis of intramuscular microcystic lymphatic malformation was established (Fig. 4 and 5). The patient is under regular follow-up to ensure an early diagnosis of potential recurrence.

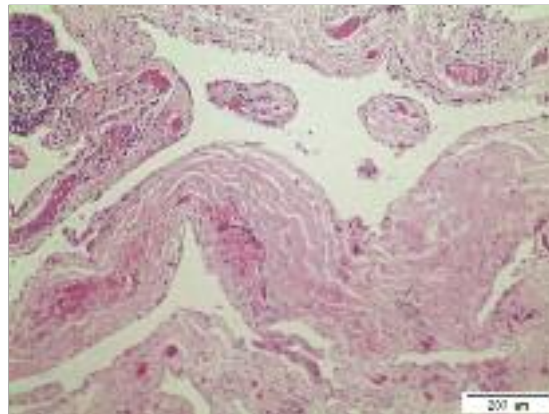


Εικ. 3: Η λεμφαγγειακή δυσπλασία διαστάσεων 1,8x1cm σκληροελαστικής σύστασης.
Fig. 3: Sclero-elastic lymphatic malformation, 1.8x1cm in size.



Εικ. 4: Διευρυμένοι λεμφαγγειακοί χώροι. Παρατηρείται η προσεκβολή του ενδοθηλιακού τοιχώματος εντός του αγγειακού χώρου (10×10=100).

Fig. 4: Dilated lymphatic spaces. Note the projection of the endothelial wall into the vascular space (10×10=100).



Εικ. 5: Διευρυμένοι λεμφαγγειακοί χώροι, με προσεκβολές του ενδοθηλίου μέσα στον αυλό των αγγειακών σχηματισμών. (4×10=40).

Fig. 5: Dilated lymphatic spaces, with projections of the endothelium into the lumen of the vascular formations (4×10=40).

πτωση η μάζα ήταν σε βάθος ιστών, εντός του μαστήρα μυ και διαπιστώθηκε κατά την ψηλάφηση της παρειάς από την ασθενή. Η μικρή αύξηση των διαστάσεων της βλάβης που αναφέρθηκε, μπορεί να αποδοθεί σε προηγούμενο τραυματισμό της κατά την λήψη ιστού, με βελόνη ή κατά την βιοψία.

Μικροσκοπικά ο μικροκυστικός τύπος, μοιάζει με ομάδες από μικρές φλύκταινες που κυμαίνονται σε χρώμα από ροζ έως σκούρο κόκκινο (Kaban και Mulliken, 1986, Amouri και συν. 2007, Schoinohoriti και συν. 2012). Παρόμοια μικροσκοπική εικόνα είχε και η βλάβη που παρουσιάζεται.

Ποικιλία μεθόδων έχουν αναφερθεί για τη θεραπεία των λεμφαγγειακών δυσπλασιών, ανάμεσα στις οποίες είναι η κρυοθεραπεία, η λήψη στεροειδών, η ακτινοθεραπεία, η αφαίρεση με χρήση laser CO₂, η κρυοχειρουργική και πιο συχνή η κλασική χειρουργική αφαίρεση (Kaban & Mulliken, 1986, Weingold και συν. 1990, Grasso και συν. 2008, Adamns και συν. 2012). Στην περίπτωση που παρουσιάζεται επιλέχθηκε η χειρουργική αφαίρεση που ήταν εφικτή και ασφαλής με ενδοστοματική προσπέλαση.

Οι λεμφαγγειακές βλάβες αποτελούν μέρος του ευρύτερου λεμφαγγειακού δικτύου, που σπάνια μπορεί να υποτροπιάσουν και για τον λόγο αυτό απαιτείται παρακολούθηση των ασθενών. Η υποτροπή έχει σχέση κυρίως με την ηλικία του ασθενή, τον τύπο, την εντόπιση και την σε υγιείς ιστούς εκτομή της δυσπλασίας (Αγγελόπουλος και συν. 2000, Grasso και συν. 2008, Schoinohoriti και συν. 2012).

Συνοψίζοντας, το ενδιαφέρον της περίπτωσης μας χωρίς προηγούμενη αναφορά στην βιβλιογραφία, έγκειται στην ασυνήθιστη εντόπιση της λεμφαγγειακής δυσπλασίας εντός του μαστήρα μυ, καθώς και στην προχωρημένη ηλικία της ασθενούς για ανάλογη βλάβη.

DISCUSSION - CONCLUSIONS

Vascular malformations can reach different scopes and depths within the tissues. Their development in deeper layers can delay their diagnosis, which may become possible only after their size has increased and caused functional problems, such as macroglossia (Brennan et al. 1997).

This increase in the size of lymphatic malformations can be triggered by injuries, inflammation, endocrinological changes, or lymphatic obstructions (Giguère et al. 2002, Amouri et al. 2007, Grasso et al. 2008). In the case reported here, the mass was at some depth within the tissues, inside the masseter muscle, and was detected by the patient upon palpation of the cheek. The slight increase in the lesion's dimensions can be attributed to a prior injury caused while obtaining tissue with a needle or biopsy instrument.

Microscopically, microcystic lymphatic malformations appear like clusters of small blisters, whose colour can range from pink to dark red (Kaban & Mulliken, 1986, Amouri et al. 2007, Schoinohoriti et al. 2012). The lesion presented here had a similar microscopic picture.

According to the existing literature, a variety of methods have been used to treat these malformations, including cryotherapy, steroids, radiotherapy, laser CO₂ removal, cryosurgery and, most frequently, classic surgical removal (Kaban and Mulliken, 1986, Weingold et al. 1990, Grasso et al. 2008, Adamns et al. 2012). In the case presented here, we opted for surgical removal, which was feasible and safe via intraoral approach, given the rather small lesion size.

These lesions as part of the wider lymphatic system, they may, in rare cases, recur, which makes regular patient follow-ups necessary. Recurrences are mainly

associated with the patient's age, type and site of lesion as well as their removal with healthy tissue margins (Grasso et al. 2008, Schoinohoriti et al. 2012).

To summarise, the importance of this case lies in the rare occurrence site of the lymphatic malformation inside the masseter muscle, as well as in the patient's age, which was above what is typically reported for this type of lesions.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ/REFERENCES

- Αγγελόπουλος Α, Παπανικολάου Σ, Αγγελοπούλου Ε: Όγκοι αγγειακής προέλευσης. Στο βιβλίο: Σύγχρονη Στοματική και Γναθοπροσωπική Παθολογία. Ιατρικές Εκδόσεις Λίτσας, 3η έκδοση, σελ 395-396, 2000
- Adams MT, Saltzman B, Perkins JA: Head and neck lymphatic malformation treatment: a systematic review. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 147(4):627-39, 2012
- Amouri M, Masmoudi A, Boudaya S. et al.: Acquired lymphangioma circumscriptum of the vulva. *Dermatology online journal* 13 (4): 10, 2007
- Brennan TD, Miller AS, Chen SY: Lymphangiomas of the oral cavity: a clinicopathologic, immunohistochemical, and electron-microscopic study. *J of Oral and Maxillofac Surg* 55: 932-935, 1997
- Giguère C, Bauman N, Smith R: New treatment options for lymphangioma in infants and children. *The Annals of Otolology, Rhinology, and Laryngology* 111 (12 Pt 1): 1066–75, 2002.

- Grasso D, Pelizzo G, Zocconi E, and Schleef J: Lymphangiomas of the head and neck in children. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 28(1): 17–20, 2008
- Kaban L, Mulliken J: Vascular anomalies of the maxillofacial region. *J Oral Maxillofac Surg.* 44(3):203-13, 1986
- Kim J, Yoo K, Moon K, Park K, Chung Y, Kim KO, Park C, Hahn T. et al: Gallbladder lymphangioma: a case report and review of the literature. *World J Gastroenterol.* 14;13(2):320-3, 2007
- Mulliken J, Glowacki J: Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. *Plast Reconstr Surg.* 69(3):412-22, 1982
- Schoinohoriti O, Theologie-Lygidakis N, Tzerbos F, Iatrou I: Lymphatic malformations in children and adolescents. *J Craniofac Surg.* 23(6):1744-7, 2012
- Schwartz RA, Patel GA: Cutaneous lymphangioma circumscriptum: frog spawn on the skin. *Int J Dermatol.* 48(12):1290-5, 2009
- Weingold D, White P, Burton C: Treatment of lymphangioma circumscriptum with tunable dye laser. *Cutis: cutaneous medicine for the practitioner* 45 (5): 365–6, 1990

Διεύθυνση επικοινωνίας:

Νικόλαος Κεχαγιάς

Δαβάκη 18 Λαγκαδάς, Θεσσαλονίκη

TK: 572 00 • Ελλάδα

Τηλ.: 2394 025850, Κιν.: 6977 951723

e-mail: nikoskech@gmail.com

Address:

Nikos Kechagias

Davaki 18 Lagadas, Thessaloniki

572 00 • Greece

Tel.: 2394 025850, Mob.: 6977 951723

e-mail: nikoskech@gmail.com