

آنژیو فیبروم نازوفارنکس در دهان مرد 50 ساله؛ گزارش مورد

مهین بخشی^{*}، سمیرا بصیر شبستری^{**}، نصرت ا... عشقیار^{***}

^{*} استادیار گروه بیماری‌های دهان و تشخیص، دانشکده‌ی دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی و خدمات بهداشتی درمانی شهید بهشتی
^{**} استادیار گروه بیماری‌های دهان و تشخیص، دانشکده‌ی دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی و خدمات بهداشتی درمانی قزوین
^{***} استاد گروه آسیب شناسی دهان، فک و صورت، دانشکده‌ی دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی و خدمات بهداشتی درمانی تهران

چکیده

آنژیوفیبروم نازوفارنکس، تومور عروقی خوش خیم نادری است که نازوفارنکس و سینوس پارانازال پسران نوجوان را درگیر می‌سازد و تظاهر آن در دهان بسیار نادر است. در این گزارش به ارایه آنژیوفیبروم نازوفارنژیال در مخاط باکال مرد 50 ساله پرداخته شد، که به گونه‌ی آسیب اگزوفیتیک پولیپوئید با ته رنگ قرمز - قهوه‌ای تیره در طی 8 سال رشد یافته بود. بر پایه‌ی یافته‌های بالینی، تشخیص احتمالی تومورهای مزانشیمال مطرح شد. بیوپسی اکسیژنال به عمل آمد و در بررسی آسیب شناسی، آنژیوفیبروم گزارش شد.

واژگان کلیدی: آنژیوفیبروم نازوفارنکس، حفره‌ی دهان، تومور مزانشیمال

درآمد

آنژیوفیبروم نازوفارنکس، نئوپلاسم عروقی خوش خیم نادری است که تنها در بینی و نازوفارنکس و پاراناژال پسران نوجوان 10 تا 17 ساله رخ می‌دهد⁽¹⁻¹¹⁾. با وجود این که سرآغاز این آسیب دقیقاً آشکار نیست اما بر پایه‌ی نظر برخی پژوهشگران به نظر می‌رسد که این آسیب معمولاً در حفره‌ی پتریگوپالاتین به وجود می‌آید و از طریق کانال اسفونوپالاتین به سوی حفره‌ی بینی گسترش می‌یابد⁽¹⁾. در موارد پیشرفته تومور شاید به گونه‌ی اینتراکرنیال گسترش یابد^(1, 2, 10). آنژیوفیبروم نازوفارنکس بیشتر موجب درگیری سینوس اتموئید و ماگزیلاری، اربیت و قاعده‌ی جمجمه می‌شود اما تظاهر آن به گونه‌ی درون دهانی خیلی نادر است، به گونه‌ای که یک درصد همه‌ی تومورهای سر و گردن را در بر می‌گیرد^(1, 2, 6, 10). این آسیب به علت واسکولاریتی شدید بیشتر به گونه‌ی توده‌ی غیر کپسوله با ته رنگ آبی، قرمز، بنفش و سیر رشدی آهسته خوش خیم تظاهر می‌یابد. اما گاهی در بالین ممکن است رفتار تهاجمی را بصورت گسترش به سوی استخوان‌های جمجمه و سینوس پاراناژال و اربیت یا فوسای میانی کرانیال نشان دهد که در این موارد جهت بررسی گسترش آسیب و درجه‌ی تخریب بافت‌های مجاور استفاده از ام آر ای و سی تی اسکن مفید خواهد بود.

گرچه آنژیوفیبروم نازوفارنکس از لحاظ میکروسکوپی، خوش خیم بوده اما به عنوان آسیب موضعا مهاجم و مخرب مطرح شده است⁽¹⁻¹⁰⁾. در نمای ماکروسکوپی این آسیب به گونه‌ی توده‌ی قرمز-بنفش با حدود مشخص و حداکثر اندازه‌ی 6 سانتی-متر است و سطح برش خورده تظاهر فیروز دارد. بیشتر عروق خونی در نزدیک پایه‌ی جای برش دیده می‌شوند و فضاهای سیستیک و نکروز و زخم در این آسیب شایع نیستند. مشخصه بافت‌شناختی این تومور استرومای عروقی کلاژنیزه‌ی دارای عروق خونی گوناگون با شکل‌های نامنظم و فیبروبلاست‌های با نمای یکدست ستاره‌ای یا دوکی شکل با هسته‌ی پلومپ (Plump) است. کانال‌های عروقی با اندازه و شکل‌های گوناگون که توسط آندوتلیوم مفروش شده‌اند. عروق خونی بزرگتر گاهی ممکن است توسط سلول‌های عضله صاف در بر گرفته شوند^(2, 3). از آنجا که تشخیص آنژیوفیبروم نازوفارنکس بر پایه‌ی یافته‌های بالینی و پرتونگاری و بافت‌شناختی است بنابراین تشخیص آن پیش از جراحی دشوار است. تشخیص‌های افتراقی

مطرح شده برای این آسیب همچون: آسیب‌های عروقی (همانژیوپری سائتوما، تومور فیروز منفرد و آنژیوسارکوم) است. اما مشخصات سن و جنس و موقعیت و اندازه‌ی آسیب، گسترش آن به سوی ساختارهای مجاور در تشخیص آنژیوفیبروما قویا کمک کننده است. درمان‌های گوناگونی همچون جراحی، رادیوتراپی، سفارش هورمون‌های اگزوزن، درمان با عوامل اسکروزان، آمبولیزاسیون برای آن پیشنهاد می‌شود. امروزه درمان آغازین و برتر برای آنژیوفیبروم نازوفارنکس، جراحی است. در بیشتر پژوهش‌ها 20 تا 40 درصد عود برای این آسیب گزارش شده که به علت برش ناکافی جراحی ناشی از جای غیر دسترس کالبدی آسیب و طبیعت مهاجم آسیب است. رادیوتراپی معمولاً در موارد عود آسیب‌ها و برای تومورهای گسترش یافته به سوی اینتراکرنیال به کار برده می‌شود⁽¹⁻³⁾. تغییرات بدخیمی این آسیب به فیبروسارکوم به ندرت رخ می‌دهد، که احتمالاً با پیشینه‌ی رادیوتراپی که جهت درمان آن انجام گرفته در پیوند است⁽¹⁾.

شرح مورد

مردی 50 ساله با شکایت از تغییر رنگ یک توده‌ی برجسته در مخاط باکال به بخش بیماری‌های دهان دانشکده دندانپزشکی تهران مراجعه نمود. در پیشینه‌ی پزشکی، شواهد بالینی مبنی بر پیشینه‌ی بیماری سیستمیک یا مصرف دارو یافت نشد. بیمار بیان داشت، که این آسیب اگزوفیتیک در طی 8 سال گذشته رشد تدریجی و طی سه ماه گذشته تغییر رنگی از صورتی به قرمز قهوه‌ای تیره داشته است. بیمار به جز برجستگی و تغییر رنگ، شکایتی مبنی بر درد، پیشینه‌ی خونریزی از آسیب و تغییر حس را ابراز نداشت. در نمای بیرون دهانی و معاینه‌ی غدد لنفاوی سر و گردن و بررسی‌های پرتونگاری (نمای پانورامیک و پری اپیکال) یافته‌ی ویژه‌ای دیده نشد (نگاره‌ی 1 الف). اما در نمای درون دهانی، یک آسیب اگزوفیتیک پایه‌دار با قوام سفت - لاستیکی و به رنگ قرمز - قهوه‌ای تیره با سطح صاف و در برخی نواحی زخمی و اندازه‌ی حدود $1/5 \times 3/5$ سانتی‌متر در مخاط باکال دیده شد (نگاره‌ی 1 ب). با توجه به شواهد بالینی به دست آمده تومورهای مزانشیمال و عروقی به عنوان تشخیص‌های احتمالی مطرح شدند. در طی بیوپسی اکسیژنال که جهت تشخیص قطعی انجام گرفت، خونریزی شدیدی رخ نداد. در نمای میکروسکوپی آسیب، بافت فیبروواسکولار دیده شد.



نگاره‌ی 1 الف نمای خارج دهانی آسیب (فقدان تظاهر) **ب** نمای داخل دهانی آسیب اگزوفیتیک پایه دار **پ** نمای میکروسکوپی آسیب با بزرگنمایی 40

صاف در بر گرفته شده‌اند و نیز فیبروبلاست‌های ستاره‌ای شکل با هسته پلومپ می‌باشد. تشخیص آنژیوفیبروم نازوفارنکس بر پایه‌ی یافته‌های بالینی و پرتونگاری و بافت‌شناختی ارایه می‌گردد بنابراین تشخیص آن پیش از جراحی دشوار است. امروزه درمان برتر برای آن، جراحی است. در بیشتر بررسی‌ها 20 تا 40 درصد عود برای این آسیب گزارش شده است (1-3).

به دنبال مروری که بر روی بررسی‌های انجام شده در این راستا صورت گرفت مشخص گردید، که به ندرت این نئوپلاسم در دهان تظاهر می‌یابد بنابراین تصمیم بر آن شد، که به ارایه‌ی این گزارش پرداخته شود.

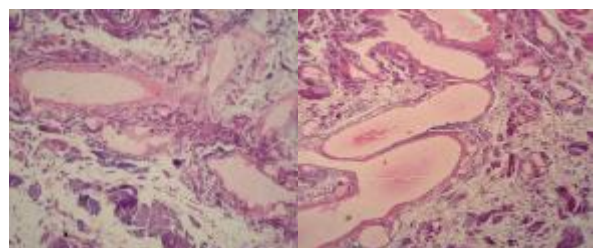
پاتریک (Patrick)، 21 مورد آنژیوفیبروم نازوفارنکس را که طی سالهای 1972 تا 1988 در مردان تظاهر یافته بود را گزارش نمود (7). جاکوبس (Jacobsson)، بروز 18 مورد آنژیوفیبروم نازوفارنکس که 6/5 سال پیگیری شدند را از لحاظ درمان و میزان عود بصورت گزارش ارایه کرد (10). موتو (Motoo)، یک مورد آنژیوفیبروم نازوفارنکس در سینوس ماگزیلاری پسر 13 ساله را گزارش نمود (12).

اسشیک (Schick)، به گزارش آنژیوفیبروم نازوفارنکس در کیسه‌ی اشکی پسر 15 ماهه پرداخت (11). گزارش اسشیک از لحاظ سن بروز آسیب (کمتر از سن معمول) چشمگیر بود. در حالی که گزارش کنونی از لحاظ سن (بیشتر از سن معمول) و جای وقوع (دهان) جالب توجه است.

پینو (Pino)، طی 12 سال (1990 تا 2001) نتایج ناشی از درمان شش مرد مبتلا به آنژیوفیبروم نازوفارنکس را بصورت گزارش ارایه نمود (13). ویندفور (Windfuhr)، بروز آنژیوفیبرومای نازوفارنکس در حفره‌ی بینی 42 بیمار (32 مرد و 10 زن) را گزارش کرد. 72 درصد از بیماران زیر 19 سال بودند و ماگزایلا به

دسته‌های متقاطع از رشته‌های کلاژن و در برخی نواحی نمای عروق خونی گسترش یافته‌ی مفروش از سلول‌های اندوتلیال برجسته در اندازه‌های گوناگون که در برخی نقاط دارای فعالیت پرولیفراتیو بودند گزارش گردید (نگاره‌ی 1 پ).

در درون مجرای عروق ماده‌ی اتوزینوفیل آمورف و گاهی در مقاطع عروق وجود بافت عضلانی دیده شد (نگاره‌ی 2). در بخشی از بافت خروج گلبول‌های قرمز در درون بافت مشاهده شد. سلول‌های فیبروبلاست با هسته‌های نسبتاً برجسته و گاهی ستاره‌ای شکل در سرتاسر بافت وجود داشت که در برخی نواحی واجد تراکم سلولی بیشتر و در بخش‌هایی بافت سست و کم سلول تر دیده شد. با توجه به یافته‌های بالینی و بافت‌شناختی، تشخیص آنژیوفیبروم مطرح شد.



نگاره‌ی 2 وجود ماده اتوزینوفیل آمورف در داخل مجاری عروقی و بافت عضلانی در جدار عروق

بحث

آنژیوفیبروم نازوفارنکس، نئوپلاسم عروقی نادری است، که تنها در نازوفارنکس پسران 10 تا 17 ساله و به ندرت در درون دهان رخ می‌دهد (1-11). این نئوپلاسم بیشتر به گونه‌ی توده غیر کپسوله قرمز - بنفش با سیر رشدی آهسته و حداکثر 6 سانتی‌متر تظاهر می‌یابد. مشخصه بافت‌شناختی این تومور استرومای فیبروواسکولار محتوی عروق خونی که توسط سلول‌های عضله

گفتنی است، که این گزارش با وجود نادر بودن آنژیوفیبروم نازوفارنکس به این دلیل ارایه گردید، که بسیار جالب بوده است. زیرا با وجود اینکه نمای بالینی (رنگ، اندازه شکل و سیر آهسته رشد) و آسیب‌شناسی همانند نمای معمول آنژیوفیبروم را داشته اما از نظر جا (تظاهر در دهان) و سن (50 سالگی) آسیب به گونه‌ی غیرمعمول بروز یافته است.

نتیجه‌گیری

از آنجا که آنژیوفیبروم نازوفارنکس، تومور عروقی خوش خیم نسبتاً نادری است که عمدتاً در نازوفارنکس پسران نوجوان 10 تا 17 ساله رخ می‌دهد بنابراین به ارایه این گزارش مبنی بر تظاهر آنژیوفیبروم نازوفارنژیال در مخاط باکال مرد 50 ساله پرداخته شد. با وجود نادر بودن این تومور در دهان، ارایه‌ی این مورد برای دندان پزشکان جالب است زیرا تأکیدی بر ارجاع به متخصصین مربوطه در راستای معاینه‌ی دقیق دهان و لزوم نمونه برداری و پیگیری این بیماران از لحاظ عود و تغییرات بدخیمی خواهد بود.

عنوان شایع‌ترین جای بروز آنژیوفیبروم نازوفارنکس (38 درصد) مطرح شده بود. در 38 نفر از بیماران نشانه‌ها طی مدت زمانی کمتر از یک سال (8/5 ماه) تظاهر یافته بودند. در 10 نفر از بیماران طی خروج تومور در فرایند بیوپسی، خونریزی کمی گزارش شده بود⁽⁶⁾. گزارش کنونی از حیث بروز در مردان و وقوع خونریزی با مقادیر کم طی فرایند بیوپسی همانند گزارش ویندفور بود. کابوت (Kabot) و استیل (Steele) تنها کسانی بودند، که تظاهر دهانی آنژیوفیبروم نازوفارنکس را به گونه‌ی درگیری استخوان آلوئولار ماگزیلاری و کام سخت گزارش کردند^(8 و 9). کلیک (Celik)، 4 مورد آنژیوفیبروم نازوفارنکس را که هر یک از لحاظ جا یا نشانه‌های بالینی یا سن یا جنس و یا نمای آسیب‌شناسی بافت غیر معمول بودند را گزارش کرد⁽⁵⁾. در مروری که بر گزارش‌های ارایه شده مربوط به آنژیوفیبروم نازوفارنکس طی سال‌های 1972 تا 2010 انجام شد، تنها در دو گزارش تظاهر دهانی آسیب رخ داده بودند، که در این میان تنها 4 مورد از آنژیوفیبروم-های نازوفارنکس از لحاظ جا یا نشانه‌های بالینی یا سن یا جنس غیر معمول بودند^(5 و 11).

References

1. Neville BM, Damm DD, Allen CM. Oral and maxillofacial pathology. 3th ed., St Louis: W.B. Saunders Co; 2009. p. 544-546.
2. Capodiferro S, Favia G, Lacaita MG, Lo Muzio L, Maiorano E. Juvenile angiofibroma: report of a case with primary intra-oral presentation. *Oral Oncology Extra* 2005; 41: 1-6.
3. Douglas R, Gnepp M. Diagnostic surgical pathology of the head and neck. 3th ed., Philadelphia: Saunders Co; 2001. p. 119-120.
4. Regezi J, Jordan R. Oral pathology, clinical pathologic correlation. 4th ed., USA: Sunders Co; 2002. p. 164.
5. Celik B, Erisen L, Saraydaroglu O, Coskun H. Atypical angiofibromas: a report of four cases. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2005; 69: 415-421.
6. Windfuhr JP, Remmert S. Extranasopharyngeal angiofibroma of the nasal cavity and paranasal sinuses. *Laryngorhinootologie* 2004; 83: 308-316.
7. Gullane PJ, Davidson J, O'Dwyer T, Forte V. Juvenile angiofibroma: a review of the literature and a case series report. *Laryngoscope* 1992; 102: 928-933.
8. Kabot TE, Goldman ME, Bergman S, Schwartz RD. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: an unusual presentation in the oral cavity. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1985; 59: 453-457.
9. Steele MH, Nuss DW, Faust BF. Angiofibroma of the larynx: report of a case with clinical and pathologic literature review. *Head Neck* 2002; 24: 805-809.
10. Jacobsson M, Petruson B, Svendsen P, Berthelsen B. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma. A report of eighteen cases. *Acta Otolaryngol* 1988; 105: 132-139.
11. Schick B, Kind M, Draf W, Weber R, Lackmann GM. Extranasopharyngeal angiofibroma in a 15-month-old child. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1997; 42: 135-140.
12. Kitano M, Landini G, Mimura T. Juvenile angiofibroma of the maxillary sinus. A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1992; 21: 230-232.
13. Pino Rivero V, Alvarez Domínguez J, Carrasco Claver F, Rejas Ugena E, Blasco Huelva A. Nasopharyngeal angiofibroma. Our experience (1990-2001). *An Otorrinolaringol Ibero Am* 2003; 30: 257-264.