

Középfül-haemangioma endoszkópos műtéti megoldása és irodalmi áttekintése

Hirschberg Andor dr.¹ ■ Pozsgay Erzsébet dr.¹
Erős Mónika dr.² ■ Liktör Balázs dr.¹

¹Észak-Közép-budai Centrum, Új Szent János Kórház és Szakrendelő,
Fül-Orr-Gégészeti és Fej-Nyaksebészeti Osztály, Budapest

²Észak-Közép-budai Centrum, Új Szent János Kórház és Szakrendelő, Patológiai Osztály, Budapest

Az endoszkópos középfülsebészet mint új műtéti technika csak az elmúlt pár évben jelent meg hazánkban, és jelenleg is csak néhány fülsébszeti központban érhető el. A módszer tagadhatatlan vívmánya a látható metszés hiánya és az igen széles látótér, melynek segítségével a középfül eddig beláthatatlan területei váltak egyszerre megjeleníthetővé. Esettanulmányunkban egy középfül-kapilláris haemangioma endoszkópos eltávolítását mutatjuk be, mely még nemzetközi viszonylatban is igazi ritásnak számít. Általában az ilyen eredetű daganatok a belső hallójáratban vagy a ganglion geniculi tájékán fordulnak elő, míg ezen elváltozás a csontos dobkeret alsó részének belfelszínéről eredt. Ezt követően összefoglaljuk a kapilláris haemangiomákkal kapcsolatos differenciáldiagnosztikai problémákat, a képalkotó vizsgálatok diagnosztikus nehézségeit és a felmerülő terápiás lehetőségeket.
Orv Hetil. 2019; 160(41): 1639–1643.

Kulcsszavak: endoszkóp, endoszkópos tympanoplastica, haemangioma, középfül

Endoscopic removal of middle ear haemangioma and review of the literature

The endoscopic middle ear surgery as a new technique has been introduced during the past few years in our country and it is available in only a few hospitals. Beyond the lack of external incision, endoscopic transcanal approach provides wide field of view to previously hidden middle ear spaces compared to the traditional microscopic technique. In this case report, we present an endoscopic surgery of middle ear capillary haemangioma that is a rare entity in tympanic cavity, therefore little has been published in the literature. Generally, these kind of vascular tumours occur in the internal auditory canal or in the perigeniculate ganglion area while this lesion originated from the inner surface of the inferior part of the bony tympanic ring. We discuss the difficulties in differential diagnosis and imaging tests then the treatment options.

Keywords: endoscope, endoscopic tympanoplasty, haemangioma, middle ear

Hirschberg A, Pozsgay E, Erős M, Liktör B. [Endoscopic removal of middle ear haemangioma and review of the literature]. Orv Hetil. 2019; 160(41): 1639–1643.

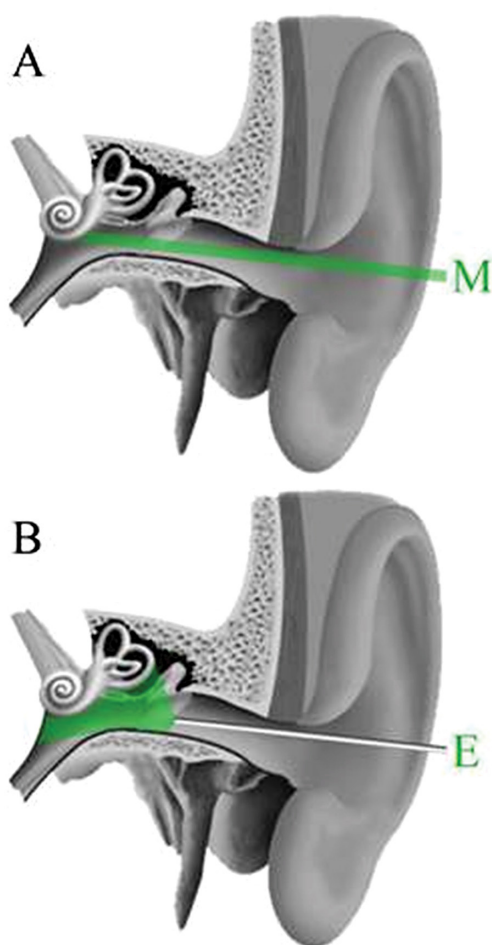
(Beérkezett: 2019. április 24.; elfogadva: 2019. május 17.)

Rövidítések

CBCT = (cone-beam computed tomography) kúpsugaras komputertomográfia; HRCT = (high-resolution computed tomography) nagy felbontású komputertomográfia; MRI = (magnetic resonance imaging) mágnesesrezonancia-képalkotás

Az elmúlt években három fül-orr-gégészeti centrum kezdte meg az endoszkópos fülsébszet művelését Magyarországon. Korábban a fülsébszetek a világ minden

táján operációs mikroszkópot használtak a középfül patológiai állapotainak megoldására hosszú évtizedeken keresztül. A szüntelen fejlődés egyre vékonyabb endoszkópok kifejlesztését hozta magával, melyek mára már nemcsak hogy elérnek a hallójáratban, hanem speciális eszközparkkal műtéti manipulációra is képesek vagyunk mellettük. Az endoszkópos technika lényege, hogy direkt rálátást biztosít a célterületre, így a legtöbb esetben elkerülhető a további látótérnövelés érdekében végzett, a középfül anatómiáját megváltoztató többletsontfúrás,



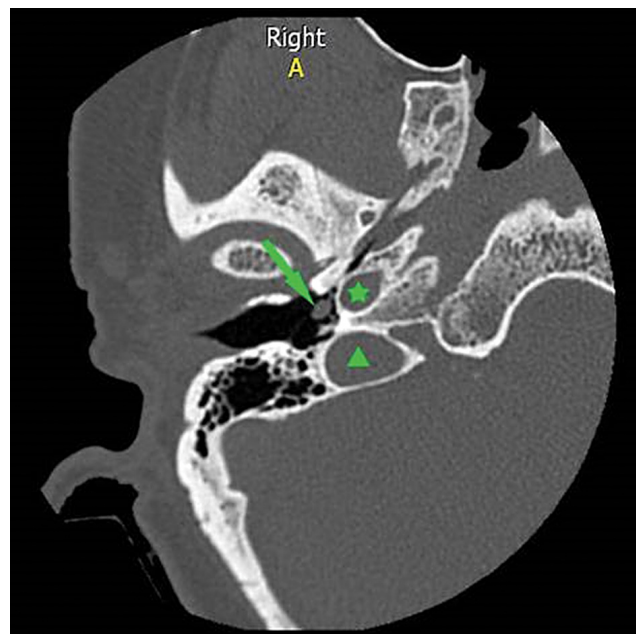
1. ábra

A mikroszkópos és az endoszkópos középfülsebészetben megmutató látótérkülönbség. A) A mikroszkóp keskeny, sávszerű területet tesz beláthatóvá. B) Az endoszkóp jóval szélesebb vizualizációt biztosít

melyre az operációs mikroszkóp használatakor igen gyakran szükségünk van (1. ábra) [1–3].

A fej-nyaki régióban viszonylag gyakran fordulnak elő haemangiómák, melyek döntő többsége gyermekkorban manifesztálódik [4]. Általában tünetmentes bőrelváltozások formájában jelennek meg, becsült incidenciájuk újszülöttekben 1–2,6%, azonban az első életévükben járó csemetékben akár a 10%-ot is elérhetik. Szerencsére az életkor előrehaladtával a betegség spontán remissziós hajlamot mutat [5]. A középfül térségében extrém ritkán fordulnak elő haemangiómák, a nemzetközi irodalomban is pusztán pár dokumentált eset lelhető fel [6].

A középfül-haemangiómák kezelése terén négy különféle terápiás modalitás merül fel. Az esetek több mint 80%-ában sebészi beavatkozás történik, melyek majdnem 95%-ban komplett reszekcióval járnak. Extrém méretű vagy igen rossz elhelyezkedésű daganatok esetén embolisatio, radioterápia vagy konzervatív kezelés jön szóba; ennek elbírálása személyre szabottan történik. Fıtal korban a kapillárishaemangiómák igen jól reagálnak propranololterápiára, azonban ennek a középfülben való hatásosságát még nem jelentette senki [5–7].



2. ábra

Horizontális CBCT-felvétel (jobb fül). A középfülben azonosítható a haemangioma (zöld nyíl), mely nem éri el a középfül csontos falainak egyikét sem. Továbbá nincs összeköttetés a carotis (zöld csillag) és a vena jugularis interna (zöld háromszög) csontcsatornája között sem

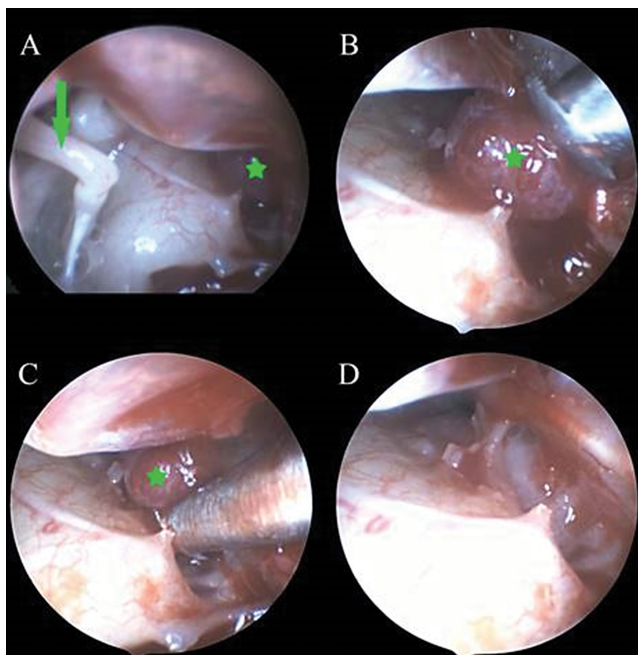
CBCT = kúpsugaras komputertomográfia

Esetismertetés

Egy 57 éves nőbeteg mikroszkópos fülvizsgálatának mellékleletként a jobb oldali középfülében, az első-alsó dobhártyanegyed mögött, panaszt nem okozó, vörhenyes szövetszaporulatot azonosítottunk. Audiológiai vizsgálattal mindkét oldalon kis fokú szimmetrikus idegi halláscsökkenést mértünk, és vezetékes komponenst nem identifikáltunk. CBCT-felvételen a jobb középfülben, a hypotympanon felett, a carotiscsatornától laterálisan egy 4×2 mm-es, a hallócsontláncolattól független, magas denzitású szövetplusz ábrázolódt (2. ábra). Az arteria (a.) carotis interna és a bulbus venae jugularis csontcsatornája teljesen intaktnak mutatkozott. Endauralis behatolás után endoszkópos ellenőrzés mellett eltávolítottuk a vérzékeny idegen szövetet (3. ábra). A szövettani vizsgálat az eltávolított mintában kapillárishaemangiómát azonosított (4. ábra). Betegünk a beavatkozás után 6 hónappal panaszmentes, középfülében residuumra utaló eltérést nem azonosítottunk, és audiológiai vizsgálati eredményei a korábbi idegi halláscsökkenésén kívül további hallásromlást nem mutattak.

Megbeszélés

Az esettanulmány két fő célja a hazai vizeken gyerekcipőben járó endoszkópos középfülsebészet népszerűsítése és a még tünetmentes állapotban felismert, ezáltal funkció-



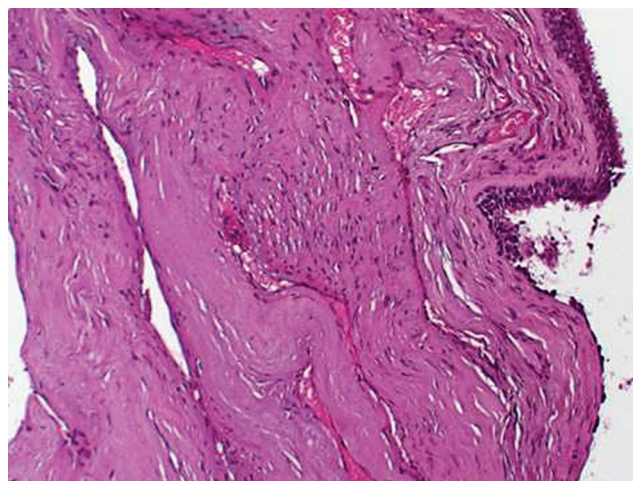
3. ábra

Endoszkópos tympanoplastica intraoperatív ábrázolása. A) A dobhártya felemelése után módfelelt széles látótér mutatkozik meg egyenes optikával. Középen látható a promontorium (a csiga bazális kanyarulata) és a kerekablak-fülke, melyben kis mennyiségű vér található. Zöld nyíl mutatja az üllő hosszú szárát, mely a kengyel fejével közlekedik, alatta megjelenik a nervus facialis. Az ábra jobb oldalán helyezkedik el a hypotympanon, melyben zöld csillaggal jelöltük a haemangiómát. B) 30 fokos endoszkóppal jól vizualizálható az idegen szövet (zöld csillag). Megkezdjük a tompa preparálást. C) Miután a dobhártyáról leválasztottuk a tumort (zöld csillag), minden oldalról körüljártuk és egyben eltávolítottuk. D) Az eltávolítás után jól betekinhető az üresen maradt (tumortmentes) hypotympanon ürege

veszteség nélkül meggyógyított, igen ritka vascularis eredetű középfüldaganat bemutatása.

Az endoszkópos középfülsebészet hozadékaként elkezdhetővé vált a külső bőrmetszés, továbbá az endoszkóp által biztosított módfelelt széles látótérben az egész elváltozás egyszerre volt betekinhető (3/A ábra) [2]. A kapillárishaemangiómák rendkívül vérzékeny daganatok, így lehetőség szerint tokjuk mentén, tompán célszerű körülpreparálni őket, ahogyan esetünkben is látható. A tok sérülése esetén voluminózus vérzés következhet be, mely könnyen ellehetetleníti az endoszkópos beavatkozás folytatását, ilyenkor hagyományos operációs mikroszkópos konverzió szükséges [8]. Komolyabb vérzés a helyesen megválasztott műtéti technika miatt nem jelentkezett, a szivárgó vérzést spongostannal támoztuk.

A tompa preparálás eredményeképpen identifikáltuk, hogy a daganat kiindulási pontja a csontos dobkeret alsó részének belfelszíne, melyről szeszilis módon ered, és vérellátását is onnan nyeri. A nemzetközi irodalom tanulmányozása során hasonló kiindulású kapillárishaemangiómára nem bukkantunk, azonban az is megjegyzendő, hogy több közleményben nem volt feltüntetve,



4. ábra

A középfül-kapillárishaemangioma szövettani ábrázolása hematoxin-eozin festéssel. Szabályosan megjelenő több magosoros csillószerű hengerhám alatt vastos, hyalin falú, endothellel bélelt erekből álló proliferátum figyelhető meg. Ugyanakkor malignitásra utaló jelek nem azonosíthatók (100×)

vagy nem lehetett meghatározni az elváltozás pontos eredetét.

Megkülönböztetünk gyermekkorban (congenitalis) és felnőttkorban jelentkező haemangiómákat, melyek között a legfontosabb eltérés az, hogy a gyermekkori esetek csaknem mindig spontán regressziót mutatnak [6]. A középfül-haemangiómák lehetnek tünetmentesek, vagy okozhatnak elhelyezkedésüknek megfelelő tüneteket. A leggyakrabban progresszív növekedésükkel vezetnek csontdestrukcióhoz, így elpusztíthatják a hallócsontokat, ezáltal vezetékes halláscsökkenést és pulzusszinkrón fülzúgást válthatnak ki. Amennyiben involválják a cochleát, idegi típusú hirtelen halláscsökkenést, a hártás labyrinthus érintettsége esetén vertigót okozhatnak. Emellett a nervus facialis csontcsatornájának destruktívójával azonos oldali perifériás facialis paresist idézhet elő. A dobhártya áttörése javarészt fülfolyáshoz és ismétlődő fülvérzéshez vezethet [4, 6, 9]. Esetünkben a daganat igen kis méreténél fogva nem okozott csontdestrukciót, így maradandó károsodást sem kellett betegünknek elszenvednie.

Az alapos mikroszkópos fülvizsgálat már felvetheti a diagnózist, azonban több vörös terime jelenhet meg az emberi középfülben, melyeket *Dayal és mtsai* vascularis, neoplastikus és gyulladásos folyamatokra osztott (1. táblázat) [10]. A leggyakoribb vascularis eredetű laesio a középfülben a glomustumor, mely valójában pongyola megfogalmazása a középfül idegi struktúráiból kiinduló paragangliómáknak [11]. A vascularis tumorok javarészt a belső hallójáratban, a ganglion geniculi területén fordulnak elő, vagy igen ritka esetekben a dobhártyán [4, 12]. A jelen esettanulmányban megjelenő haemangioma a csontos dobgyűrű alsó részének mediális felszínéről eredt, ahol ismereteink szerint nincs az előző régiókhoz hasonló vascularis plexus rendszer.

A diagnózis pontosítása érdekében különféle képalkotó vizsgálatok végezhetők. Alapesetben HRCT-t vagy a

1. táblázat | A középfül-haemangiómák differenciáldiagnosztikájában figyelembe veendő betegségek

Vascularis laesiók	Magasan fekvő bulbus venae jugularis Szabadon fekvő/aberránsan futó intratympanalis arteria carotis interna Arteriovenosus érmalformációk Paragangliómák (glomustumor)
Nepolasztikus elváltozások	Meningeoma Haemangioma Rhabdomyosarcoma Leukaemia Melanoma Pyogen granuloma
Gyulladásos eredetű terimék	Koleszterin granuloma Hallójárat polip

mostanában már hazánkban is elérhető CBCT-t választjuk, mellyel tisztázható a terime kiterjedése és egzakt határai. Továbbá megítélhető a csontérintettség kérdése, a hallócsontláncolat épsége és a környező szervek involváltsága is. Ezen adatok elengedhetetlenek a műtéti tervezéshez. MRI-felvétel tovább pontosíthatja diagnózisunkat, ugyanis a kapilláris haemangiómák T1-súlyozott felvételen közepes jelintenzitásúak, míg T2-képeken magas erősségű jelet adnak. A differenciáldiagnosztikában segítségünkre lehet még a 'salt and pepper' jelenség, melyet a laesion belüli alacsony és magas jelintenzitások váltakozása ad, és egyértelműen a glomustumorokra jellemző, így ennek hiánya haemangiómára utal [13]. Amennyiben az a. carotis interna vagy a bulbus venae jugularis érintettsége felmerül, érdemes angiográfiás vizsgálatot végeztetni, melynek során lehetőség van szelektív embolisációra is. Sajnálatos módon a haemangiómáknak egyértelmű radiológiai jellemzőjük nincs, a definitív diagnózist a sebészi úton eltávolított tumor szövettani vizsgálati eredménye adja [4, 13]. Pácienstüknél a kisebb sugárterhelés miatt CBCT-vizsgálatot végeztünk, mely egyértelműen azonosította az a. carotis interna és a bulbus venae jugularist borító csontcsatorna épségét. Ennek köszönhetően eltekintettünk az MRI- és az angiográfiás vizsgálatoktól is, mivel képalkotó vizsgálatunk nem mutatott direkt összeköttetést a nagyerekkel.

Vascularis tumor gyanúja esetén a nemzetközi irodalom direkt szövettani mintavételt javasol, amennyiben képalkotó vizsgálattal egyértelműen kizárható a magasan fekvő bulbus venae jugularis, illetve az aberránsan futó a. carotis interna lehetősége. Középfülműtét során, amennyiben megoldható, a teljes tumorszövetet eltávolítjuk a környező képletek későbbi destrukciójának megelőzése céljából. Középfülre lokalizálódó haemangioma esetén tympanoplasticát végzünk, azonban a tumor mastoidealis terjedése esetén 'canal wall up' vagy 'canal wall down' mastoidectomiás üreg készítése is szükséges [6, 14]. Szén-dioxid-lézerrel a tumor tömege megkisebbithető,

sőt a daganat jól vaporizálható. Ennek hatására az intraoperatív vérzés mennyisége jelentősen csökkenhet, ami megkönnyíti az operációt. Mindemellett ezzel a módszerrel a teljes tumorszövet is könnyen elérhető, így szövettani vizsgálatra akár egyáltalán nem is marad anyag. Továbbá, ennyire vérzékeny környezetben a középfülben futó igen értékes képletek megkímélése miatt a lézer használata csak rendkívül tapasztalt kézbe való [14]. Amennyiben a haemangioma vagy a beteg állapota nem teszi lehetővé a sebészi eltávolítást, szelektív embolisatio kerülhet szóba. Ezen lehetőség után célzott radiotherápia megkísérelhető, mely magában foglalhatja a temporalis csont minden funkciójának (hallás, egyensúly-érzékelés, arcidegműködés stb.) végleges kiesését is [5].

Anyagi támogatás: A közlemény megírása, illetve a kapcsolódó kutatómunka anyagi támogatásban nem részesült.

Szerzői munkamegosztás: P. E. kezdeményezte a cikk megírását, elvégezte az irodalomkutatást, és megírta a bevezetést és az esetismertetést. L. B. közreműködött az irodalomkutatásban, a képanyag összeállításában és a megbeszélés elkészítésében. E. M. kivitelezte a szövettani vizsgálatot, kifényképezte a metszetet, és biztosította a korrekt szövettani leírást. H. A. végezte az esettanulmányban közölt beteg endoszkópos műtétjét, továbbá közreműködött a közlemény végleges formájának elnyerésében. A cikk végleges változatát minden szerző elolvasta és jóváhagyta.

Érdekeltségek: A szerzőknek nincsenek érdekeltségeik.

Irodalom

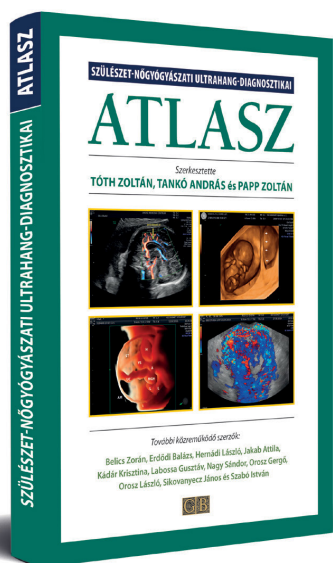
- [1] Marchioni D, Molteni G, Presutti L. Endoscopic anatomy of the middle ear. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2011; 63: 101–113.
- [2] Liktör B, Horváth T, Horváth B, et al. Endoscopic stapes surgery in Bajcsy-Zsilinszky Hospital. [Endoszkóppal végzett stapes sebészeti beavatkozások a Bajcsy-Zilinszky Kórházban.] *Otorhinolaryngol Hung.* 2019; 65: 3–6. [Hungarian]
- [3] Pap I, Burián A, Szanyi I, et al. Initial experiences in endoscopic ear surgery in University of Pécs, Department of Otorhinolaryngology and Head and Neck Surgery Clinic. [Endoszkópos fülsébzettel szerzett kezdeti tapasztalatok a PTE KK, Fül-, Orr-, Gégészeti és Fej-, Nyaksebészeti Klinikán.] *Otorhinolaryngol Hung.* 2018; 64: 147–152. [Hungarian]
- [4] Hecht DA, Jackson CG, Grundfast KM. Management of middle ear hemangiomas. *Am J Otolaryngol.* 2001; 22: 362–366.
- [5] Pavamani SP, Surendrababu NR, Ram TS, et al. Capillary haemangioma involving the middle and external ear: radiotherapy as a treatment method. *Australas Radiol.* 2007; 51: 394–397.
- [6] Salamat AA, Casselden E, Theaker J, et al. Middle ear capillary haemangioma: review of literature and appraisal of management options. *Auris Nasus Larynx* 2016; 43: 595–601.
- [7] Zimmermann AP, Wiegand S, Werner JA, et al. Propranolol therapy for infantile haemangiomas: review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2010; 74: 338–342.

- [8] Anschuetz L, Bonali M, Guarino P, et al. Management in bleeding exclusive endoscopic ear surgery: pilot clinical experience. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2017; 157: 700–706.
- [9] Tokyol C, Yilmaz MD. Middle ear hemangioma: a case report. *Am J Otolaryngol.* 2003; 24: 405–407.
- [10] Dayal VS, Lafond G, Van Nostrand AW, et al. Lesions simulating glomus tumors of the middle ear. *J Otolaryngol.* 1983; 12: 175–179.
- [11] Gulya AJ. Section II. The glomus tumor and its biology. *Laryngoscope* 1993; 103(Suppl): 7–15.
- [12] Kim SB, Lee HH. Capillary hemangioma of the tympanic membrane and external auditory canal. *J Craniofac Surg.* 2017; 28: e231–e232.
- [13] Pistorio V, De Stefano A, Petrucci AG, et al. Capillary haemangioma of the middle ear: a rare lesion difficult to evaluate. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2011; 31: 109–112.
- [14] Kostrzewa JP, Bowman MK, Woolley AL. Middle ear hemangioma: a novel treatment for a rare problem. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol Extra* 2010; 5: 50–52.

(Liktör Balázs dr.,
Budapest, Diós árok 1–3., 1125
e-mail: balazsliktor@gmail.com)

Könyvajánlat

MEGJELENT!



■ Örömmel tudatjuk, hogy a Golden Book Kiadó gondozásában megjelent **Tóth Zoltán–Tankó András–Papp Zoltán szerkesztésében a Szülész-nőgyógyászati ultrahang-diagnosztikai atlasz** című hiánypótló szakkönyv.

A nagy (A/4) formátumú, dekoratív, több mint 500 oldalas könyv a szerkesztőkön kívül az ország különböző klinikáiról, kórházaiból felkért további 11 kitűnő közreműködő szerző gazdag képanyagát tartalmazza. A több mint 2500, nagyrészt színes fénykép a hozzátartozó ábramagyarázatokkal nemcsak a mindennapi gyakorlatot szolgálja, hanem sok ritka kórképet is bemutat, amellyel a gyakorló szülész-nőgyógyász orvos praxisa során csak ritkán találkozhat.

A korlátozott példányszámban megjelent szakkönyv bolti ára 29.500,- Ft. Kedvezményes beszerzési árról bővebben a Kiadó alábbi honlapján olvashat:

www.whitegoldenbook.hu

A kötet nem hiányozhat a szülész-nőgyógyászok könyvespolcáról és a napi ultrahangvizsgálatokat végző orvosok és szonográfusok ultrahang-készülékei mellől. A gazdag képanyag és magyarázó szöveg nagy segítségükre lehet az orvostanhallgatóknak is a klinikai embriológia és a klinikai anatómia tanulmányozása során.