

Otrzymano: 2006.05.17
Zaakceptowano: 2006.10.19

Hemangioma cavernosum of the rib in an 8-month-old child – case report

Naczyniak jamisty żebra u 8-miesięcznego dziecka – opis przypadku

Elżbieta Kuleta-Bosak¹, Przemysław Latacz¹, Ewa Kluczevska¹, W. Madziara²

¹ Zakład Diagnostyki Obrazowej Katedry Radiologii ŚAM, Katowice, Polska

² Klinika Chirurgii Dziecięcej SAM, Oddział Chirurgii Onkologicznej, SPSK nr 6, Górnośląskie Centrum Zdrowia Dziecka i Matki w Katowicach, Polska

Adres autora: Przemysław Latacz, Zakład Diagnostyki Obrazowej, Górnośląskie Centrum Zdrowia Dziecka i Matki, 40-752 Katowice, ul. Medyków 16, e-mail: thenomads@interia.pl

Summary

Background:	Hemangioma cavernosum of the rib is less than 1% of all primary bone tumors. Most frequently they are found in vertebrae and in skull bones. The cases of other bones involvement are extremely rare and there are very few reports of rib hemangiomas.
Case report:	We report a case of hemangioma cavernosum of the left VI rib in 8-month-old male infant and describe diagnostic imaging such as radiography, ultrasound, computed tomography performed in this case. Hemangioma was excised totally. Documented 18-month postoperative course did not reveal recurrence.
Conclusions:	Malignant process always needs to be considered in small children who developed expanding growth of bone tumor. Hemangioma cavernosum should be considered in differential diagnosis of solid-cystic bone tumors in untypical localizations and at every age.
Key words:	hemangioma cavernosum • rib • radiology
PDF file:	http://www.polradiol.com/pub/pjr/vol_71/nr_4/9185.pdf

Wstęp

Naczyniak krwionośny jamisty (*haemangioma cavernosum*) to guz torbielowaty lub torbielowato-lity. Składa się z licznych jamistych przestrzeni i zatok wypełnionych krwią, o cienkich lub grubszych ścianach łącznotkankowych. Często występuje w wątrobie, w kościach, mięśniach szkieletowych i skórze.

Naczyniak jamisty kości jest guzem łagodnym. Stanowi mniej niż 1% wszystkich pierwotnych nowotworów kości. Najczęściej jest stwierdzany w obrębie kręgów i w kościach czaszki, gdzie daje typowe obrazy radiologiczne. Przypadki dotyczące jego lokalizacji w żebrach i w innych kościach są sporadyczne i nie mają typowych cech w badaniach obrazowych.

W piśmiennictwie autorzy opisywali zazwyczaj pojedynczych pacjentów, Shimizu i wsp. wspominają o czterech [1], natomiast Andreeva i wsp. o szesnastu [2] pacjentach z naczyniakiem żebra w jednej pracy. Ortega i wsp. oraz Commandre i wsp. stwierdzali zmiany pojedyncze i mnogie [3, 4].

Opisany poniżej przypadek zasługuje na uwagę, ze względu na bardzo młody wiek chłopca (8 miesięcy), ponieważ najmłodszy pacjent w dostępnym nam piśmiennictwie miał 16 lat [5].

Opis przypadku

8-miesięczne niemowlę płci męskiej zostało przyjęte na oddział chirurgii onkologicznej GCZDiM z powodu guza ściany klatki piersiowej, który matka zauważyła dzień

wcześniej. W badaniu fizykalnym guz był umiejscowiony do tyłu od lewego dołu pachowego, mierzył ok. 75 x 80 mm i był twardy, miernie ruchomy względem otoczenia, niebolesny, bez cech zapalnych.

Innych istotnych odchyśleń od stanu prawidłowego nie stwierdzono. Wywiad rodzinny oraz dane dotyczące przebiegu ciąży i porodu bez znaczenia. Wykonane RTG klatki piersiowej AP oraz boczne uwidoczyły po stronie lewej miękkotkanową masę o przybliżonych wymiarach 60 x 25 mm, ze sklerotycznym, obrączkowatym zarysem zewnętrznym i delikatnymi zwapnieniami. Łopátka lewa miała trudne do oceny, bardzo niewyraźne obrysy i była odepchnięta od ściany klatki piersiowej. Guz dochodził do VI lewego żebra, które wykazywało nierówny boczny obrys.

Uzyskane obrazy sugerowały, że miejscem wyjścia guza może być łopátka lub VI lewe żebro (Ryc. 1). W rozpoznaniu różnicowym brano pod uwagę torbiel tętniakowatą, chrzęstniaka, a ze względu na bardzo młody wiek dziecka, guzy złośliwe – mięsaka Ewinga lub mięsaka kościopochodnego.

W wykonanym badaniu USG uwidoczono po stronie lewej, tuż poniżej pachy, dość dobrze ograniczony obszar patologiczny o wymiarach 36 x 22 x 23 mm umiejscowiony w obrębie tkanek miękkich ściany klatki piersiowej. Zmiana miała niejednorodne echo z widocznymi przestrzeniami płynowymi. Nie stwierdzono penetracji tej torbielowato-litej masy do wewnątrz klatki piersiowej (Ryc. 2).

Badanie TK klatki piersiowej przeprowadzono techniką spiralną przed i po podaniu dożylnym niejonowego środka kontrastowego w ilości 1 ml/kg masy ciała; wykonano również rekonstrukcje MPR i SSD.

Stwierdzono guz torbielowato-lity o wym. 55 x 45 x 25 mm wychodzący z VI żebra po stronie lewej, w linii pachowej. Guz



Figure 2. Ultrasound. Cystic-solid mass in the chest wall without its penetration inside thoracic cage.

Rycina 2. USG. Torbielowato-lita masa w obrębie tkanek miękkich ściany klatki piersiowej, bez cech penetracji do wewnątrz klatki piersiowej.



Figure 1. Radiography. Soft-tissue mass with sclerotic rim and calcifications on the left side of thoracic cage. Irregular margin of VI left rib shaft.

Rycina 1. RTG. Miękkotkanowa masa z brzezną sklerotyzacją i zwapnieniami po stronie lewej klatki piersiowej. Nierówny obrys trzonu VI lewego żebra.

niejednorodnie wzmocniał się po dożylnym podaniu kontrastu, zawierał liczne linijne zwapnienia – przegrody i był dość dobrze odgraniczony od tkanek otaczających. (Ryc. 3) Uwidoczono również niewielkie odkształcenie opłucnej na poziomie guza. W badaniu TK obraz tkanki płucnej był prawidłowy.

Obrazy TK dokładnie wykazały pierwotne miejsce wyjścia, nie pozwoliły jednak na postawienie ostatecznego rozpoznania. W rozważaniach różnicowych nadal uwzględniano torbiel tętniakowatą, chrzęstniaka, mięsaka Ewinga i mięsaka kościopochodnego. Chirurgzy usunęli guz w całości z marginesem kości zdrowej. W badaniu histopatologicznym stwierdzono naczyniaka jamistego. W udokumentowanej 18-miesięcznej obserwacji pooperacyjnej nie odnotowano cech wznowy.

Omówienie

Rozpoznanie w badaniu klinicznym i radiologicznym naczyniaków czaszki i kręgosłupa nie przysparza większych trudności, natomiast naczyniaki w obrębie innych kości stanowią



Figure 3. CT. Cystic-solid tumor of VI rib with linear calcifications.

Rycina 3. TK. Torbielowato-lity guz VI żebra z linijnymi zwapnieniami.



Figure 4. CT. Irregular enhancement of tumor after i.v. contrast administration.

Rycina 4. TK. Niejednorodne wzmocnienie guza po dożylnym podaniu kontrastu.

problem diagnostyczny, m.in. z uwagi na częsty agresywny obraz radiologiczny sugerujący zmianę złośliwą [5] – w przypadku żeber ponad połowa pierwotnych guzów to guzy złośliwe [1]. Andreeva i wsp. opisali naczylniaki żeber z miękkotkankową komponentą zewnątrzkością [2].

W analizowanych pracach naczylniaki żeber stwierdzane były pierwotnie jako:

- a) poszerzenie żebra lub/i masa w obrębie ściany klatki piersiowej wykazująca powolny wzrost [1, 6, 7]
- b) przypadkowe, bezobjawowe znaleziska na rutynowych zdjęciach klatki piersiowej [1, 3, 5, 6]
- c) przyczyna bólu w klatce piersiowej
- d) przyczyna zespołu górnego otworu klatki piersiowej wywołana przez zmianę w pierwszym żebrze [8]

W badaniach obrazowych, zmiany spowodowane przez naczylniaki żeber opisane w piśmiennictwie są następujące:

1. Standardowe RTG klatki piersiowej – ograniczone uszkodzenie żebra [5], poszerzenie żebra [6] lub cień w obrębie klatki piersiowej wykazujący objaw zewnątrzopłucnowy (*extrapleural sign*) [1, 6]. W jednym przypadku, uzyskany cztery lata przed zabiegiem, obraz RTG został wówczas opisany jako stan po złamaniu żebra [6].
2. RTG żebra – zacinienie w obrębie żebra wykazujące objaw masy z widocznym zniszczeniem struktury kostnej [1], wychodzące poza nieregularną przerwana warstwę korową. Uwidaczniano strukturę „plastra miodu” [6]. Opisano również ekspansywne zniszczenie kości żebra przy relatywnie zachowanym beleczkowaniu [9].
3. TK – zmiana guzowata żebra szerząca się poza warstwę korową [5], z widocznym jej przerwaniem i wzrostem, również w kierunku jamy klatki piersiowej [1, 5, 6], bez zmian w obrębie mięszu płucnego i śródpiersia [6]. Stwierdzano nieregularny układ [3] i pogrubienie

beleczek kostnych oraz komponentę miękkotkankową guza [5]. W innym przypadku opisano ograniczone ekspansywne uszkodzenie kości z cienką warstwą korową i zachowanym beleczkowaniem [9]. Widoczne było wzmocnienie miękkotkankowych struktur po dożylnym podaniu środka kontrastowego [8, 9].

4. MR – niski sygnał zmiany w obrazach T1 oraz podwyższony lub wysoki w T2 z widocznym pokontrastowym wzmocnieniem [1, 5, 6]. Sygnał zewnątrzkościowego fragmentu zmiany w obrazach T1 był opisywany w jednej z prac jako dyskretnie podwyższony względem sygnału sąsiadującej tkanki mięśniowej [5].
5. Scyntygrafia – skany kości wykazywały podwyższony wychwyt fosfonianów znakowanych technetem (MDP-Tc-99m) w zajętych żebrach [1,5].
6. Arteriografia – podobnie jak naczylniaki tkanek miękkich, naczylniaki kostne nie ujawniają specyficznych zmian w arteriografii. Opisano słabe gromadzenie kontrastu bez cech hiperwaskularyzacji, które może być tłumaczone żylną naturą naczylniaka żebra w tym przypadku. W tym samym opracowaniu pojawia się opis znacznej hiperwaskularyzacji naczylniaka łopatki u innego pacjenta [5].

W żadnym z analizowanych przypadków, w badaniach RTG, TK i MR nie wykazano płynu w obrębie jam opłucnowych.

Zmiany w badaniach obrazowych (RTG, TK) wykonanych w przedstawianym przez autorów niniejszej pracy przypadku, są podobne do opisanych w piśmiennictwie.

Uzyskiwane obrazy nie są jednoznaczne i nie pozwalają na postawienie ostatecznego rozpoznania, które uzyskuje się na podstawie badania histopatologicznego [6].

W wielu przypadkach aby uzyskać odpowiednią ilość tkanki, konieczne jest rozległe wycięcie zmiany, ponieważ histologiczna budowa wielu pierwotnych guzów jest niejednorodna i badanie małych próbek może prowadzić do mylnego rozpoznania.

Sugestia rozpoznania naczylniaka kości jest ważna, ponieważ zabiegi w jego obrębie mogą prowadzić do ciężkiego krwawienia powodującego utratę krwi rzędu od 400 ml w biopsji, do 2000 ml w przebiegu okołoperacyjnym, choć np. biopsja igłowa pod kontrolą TK opisywana była jako stosunkowo bezpieczna [5]. Podaje się brak wskazań do wykonania biopsji w przypadku podejrzenia szpiczaka lub zmiany przerzutowej [6].

Badania obrazowe wykazują zmiany w żebrach mogące być skutkiem obecności naczylniaka, nie pozwalają jednak na postawienie ostatecznego rozpoznania. Jedynie naczylniaki kości czaszki i kręgów mają charakterystyczny obraz radiologiczny.

Leczenie naczylniaków kości jest leczeniem kompleksowym. Obejmuje zabieg chirurgiczny, radioterapię i embolizację [5]. W przypadku naczylniaka żeber resekcja jest leczeniem

z wyboru [1, 7]. Shimizu i wsp., Akira Ogose i wsp. oraz Takehiro Okumura i wsp. nie odnotowali wznowy u opisywanych pacjentów w udokumentowanym okresie pooperacyjnym, który wynosił od 14 miesięcy do 5 lat [1, 5, 6].

Wnioski

Stwierdzenie rozprężającego wzrostu guza kości u bardzo małego dziecka wymaga wykluczenia procesu złośliwego.

Dokładna analiza badań obrazowych może wpłynąć na przebieg dalszego postępowania terapeutycznego, co pozwoli uniknąć niebezpieczeństwa krwotoku podczas zabiegu operacyjnego lub biopsji.

Naczyniak jamisty, mimo sporadycznego występowania powinien być brany pod uwagę w diagnostyce różnicowej torbielowato-litych guzów kości w nietypowych lokalizacjach i w każdym wieku.

Piśmiennictwo:

1. Shimizu K, Yamashita Y, Hihara J et al: Cavernous hemangioma of the rib. *Ann Thorac Surg*, 2002; 74(3): 932-934.
2. Andreeva VF, Rapis IuL, Sigina AO et al: X-ray diagnosis of hemangiomas of the ribs. *Vestn Rentgenol Radiol*, 1995; (1): 39-44.
3. Ortega W, Mahboubi S, Dalinka MK et al: Computed tomography of rib hemangiomas. *J Comput Assist Tomogr*, 1986; 10 (6): 945-947.
4. Commandre F, Ruillere-Massoni G, Marabuto et al: Symmetrical rib angiomas appearing in 2 stages. *Rhumatologie*, 1971; 23 (10): 377-80.
5. Ogose A, Hotta T, Morita T et al: Solitary osseous hemangioma outside the spinal and craniofacial bones. *Arch Orthop Trauma Surg*, 2000; 120: 262-266.
6. Okumura T, Asamura H, Kondo H et al: Hemangioma of the rib: a case report. *Jpn J Clin Oncol*, 2000; 30: 354-357.
7. Clements RH, Turnage RB, Tyndal EC: Hemangioma of the rib: a rare diagnosis. *American Surgeon*, 1998; 64 (11): 1027-1029.
8. Yeow KM, Hsieh HC: Thoracic outlet syndrome caused by first rib hemangioma. *J Vasc Surg*, 2001; 33 (5): 1118 - 1121.
9. Kuo YT, Lin MB, Sheu RS: Imaging diagnosis of cavernous hemangioma of the rib - one case report and review of the literature. *Gaoxiong Yi Xue Ke Xue Za Zhi*, 1994; 10 (8): 469-473.