

Laringeal inflammatuar myofibroblastik tümör: Nadir bir olgu

Laryngeal inflammatory myofibroblastic tumor: A rare case

Gülay Bulut¹, Ayşe Öter Almalı¹, Remzi Erten¹, İrfan Bayram¹, Mahfuz Turan², Mehmet Deniz Bulut³

ÖZET

İnflamatuar myofibroblastik tümör malignite potansiyeli belirsiz, borderline bir neoplazmdir. En sık yerleşim yeri akciğerlerdir. Baş-boyun bölgesinde larinks yerleşimi oldukça nadirdir. On-bir yaşında kız hastanın üç yıldır devam eden ses kısıklığı şikayeti vardı. Yapılan laringoskopide sol vokal kordu boylu boyunca tutan, geniş tabanlı polipoid doku izlendi. Polipoid doku tamamen eksize edildi. Yapılan histopatolojik incelemede miksoid bir stroma içerisinde mikst iltihabi infiltratla karışık halde, intranükleer psödoinklüzyonları olan çok sayıda miyofibroblast izlendi. Belirgin atipi, mitoz, nekroz görülmedi. Yapılan immünohistokimyasal incelemede neoplastik hücrelerde vimentin, ALK, EMA ile pozitif boyanma izlendi. Alcian blue ile miksoid stromada boyanma görüldü. Histopatolojik ve immünohistokimyasal bulgular eşliğinde olguya laringeal inflammatuar miyofibroblastik tümör tanısı konuldu. Nadir bir antite olan laringeal inflammatuar myofibroblastik tümör, malign laringeal tümörlerden mutlaka ayırt edilmelidir. Doğru teşhis, hastada gereksiz agresif tedavi yöntemlerinden kaçınmayı ve inflammatuar myofibroblastik tümör için yeterli olan organ koruyucu komplet rezeksiyon yapılmasını sağlar.

Anahtar kelimeler: İnflamatuar myofibroblastik tümör, immünohistokimya, larinks

GİRİŞ

İnflamatuar myofibroblastik tümör (İMT) davranışı belirsiz, nadir, borderline bir neoplazmdir. İnflamatuar psödotümör, plazma hücreli granülom ve bazen inflammatuar fibrosarkom olarak da bilinir [1]. Lezyon ilk kez 1986 yılında Keen ve arkadaşları tarafından tanımlanmıştır [2]. Wenig ve arkadaşları ise 1995'te larinksteki ilk İMT vaka serisi yayımladı [3]. Lezyon çoğunlukla akciğer, mezenter ve omentumda görülür. Nadiren baş ve boyunu etkiler. Larinks tutulumu

ABSTRACT

Inflammatory myofibroblastic tumor is a borderline neoplasm with uncertain malignant potential. The most frequent site of localization is the lungs. The localization in larynx in the head-neck area is rather rare. The 11-year-old female patient had the symptom of hoarse voice, which had been continuing for three years. The laryngoscopy performed showed a polypoid tissue with a wide base, which involved the left vocal cord at full length. The polypoid tissue was completely excised. The histopathological examination performed demonstrated several myofibroblasts with intranuclear pseudo-inclusions, which were surrounded by mixed inflammatory infiltrates in a myxoid stroma. No significant atypia, mitosis and necrosis were observed. The immunohistochemistry stains were positive for Vimentin, ALK and EMA in neoplastic cells. Alcian blue stain was positive in the myxoid stroma. The case was diagnosed with laryngeal inflammatory myofibroblastic tumor in the light of histopathological and immunohistochemical findings. Laryngeal inflammatory myofibroblastic tumor, a rare entity, should definitely be distinguished from malignant laryngeal tumors. Accurate diagnosis ensures that unnecessary and aggressive treatment methods are avoided and complete, organ-salvaging resection adequate for the inflammatory myofibroblastic tumor be conducted. *J Clin Exp Invest* 2015; 6 (3): 315-317

Key words: Inflammatory myofibroblastic tumor, immunohistochemistry, larynx

nadirdir. Tüm baş-boyun lezyonlarının %14-18'ni oluşturur [4]. İngiliz literatüründe laringeal tutulum gösteren otuz yakın olgu mevcuttur. Akciğer tutulumu daha çok pediatrik çağda görülürken larinksteki olgular çoğunlukla erişkin çağdadır. Ortalama görülme yaşı 57 olup erkek kadın oranı 1,8:1'dir. Çocukluk çağında bildirilmiş bir vaka mevcuttur [5]. Prognozu genelde iyi olmasına rağmen rekürrens oranı %21 olduğu için lezyon tamamen eksize edilmediğinde klinik ve cerrahi problemlere yol açabilir [6].

¹ Yüzüncü Yıl Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji AD, Van, Türkiye

² Yüzüncü Yıl Üniversitesi Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz AD, Van, Türkiye

³ Yüzüncü Yıl Üniversitesi Tıp Fakültesi Radyoloji AD, Van, Türkiye

Correspondence: Gülay Bulut,

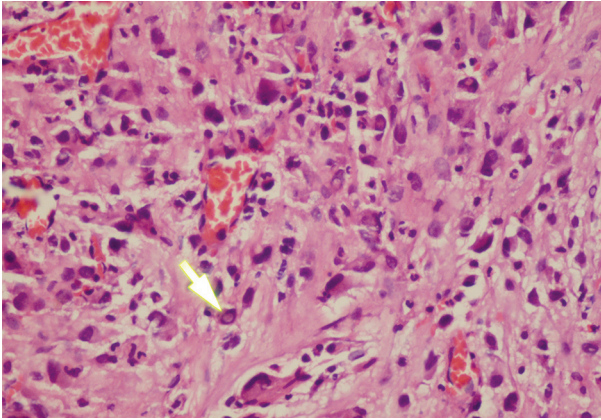
Yüzüncü Yıl Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji AD, Van, Türkiye Email: drgulaybulut@yahoo.com

Received: 27.06.2015, Accepted: 20.08.2015

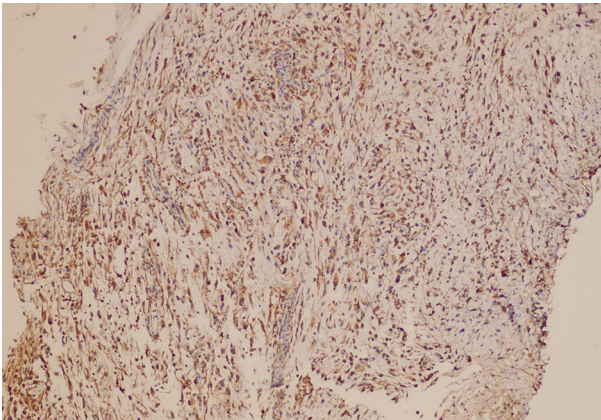
Copyright © JCEI / Journal of Clinical and Experimental Investigations 2015, All rights reserved

OLGU

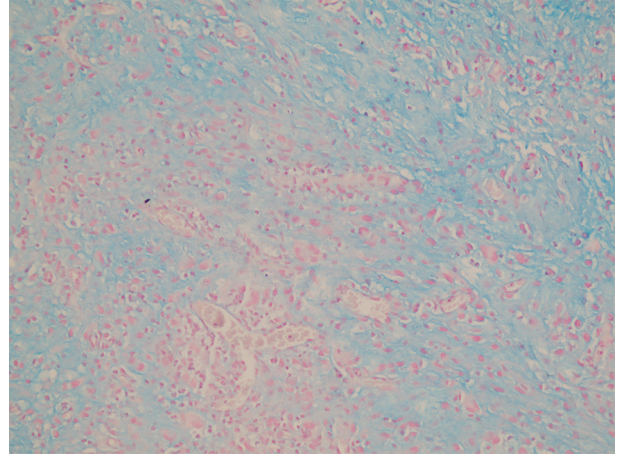
On bir yaşında kız hasta üç yıldır olan ses kısıklığı nedeniyle kliniğine müracat etti. Laringoskopide sol vokal kordu boylu boyunca tutan geniş tabanlı polipoid doku mevcuttu. Bilgisayarlı boyun tomografisinde sol vokal kordda 15x6 mm boyutlarında polipoid yapıda kitle lezyon izlendi. Polipoid doku eksize edildi. Makroskopik olarak en büyüğü 0,3 cm olmak üzere 4 adet doku parçasına ait histopatolojik incelemede; miksoid stroma içerisinde mikst iltihabi infiltratla karışık halde, intranükleer eozinofilik psödoinklüzyonları olan, hafif pleomorfizm gösteren çok sayıda tümör hücresi izlendi (Resim 1). Belirgin atipi, mitoz, nekroz saptanmadı. İmmünohistokimyasal incelemede neoplastik hücrelerde vimentin, ALK ve EMA ile pozitif boyanma görüldü (Resim 2). Ki 67 proliferasyon indeksi %5'den azdı. Alcian blue ile miksoid stroma lehine boyanma izlendi (Resim 3). Histopatolojik ve immünohistokimyasal bulgular eşliğinde olguya İMT tanısı verildi.



Resim1. Mikst tipte iltihap hücreleri ile karışık, hafif pleomorfizm gösteren, bazılarında eozinofilik psödoinklüzyon izlenen myofibroblastik hücreler (H&E x 400).



Resim 2. Tümör hücrelerinde ALK pozitifliği (ALK x 100)



Resim 3. Miksoid stromada Alcian blue ile pozitif boyanma (Alcian blue x 200)

TARTIŞMA

İnflamatuvar myofibroblastik tümör davranışı belirsiz borderline tümör olarak sınıflandırılır. Genellikle abdominal visera yanı sıra akciğer ve bronkopulmoner ağacı tutar. Baş-boyun bölgesinde nadir olmasına rağmen bu bölgede en sık larinkste görülür [3,7]. Laringeal İMT en sık vokal kordlar, subglottis veya ariepiglottik folda lokalizedir. İMT etyolojisi açık değildir. Literatüre göre en yaygın predispozan faktörler arasında travma, sigara ve immün cevap sıralanmaktadır. Kliniğinde ses kısıklığı ve disfoni vardır. Bazen dispne, stridor, globus, disfaji, hemoptizi, öksürük ve otalji gibi semptomlar da olabilir [8].

İnflamatuvar myofibroblastik tümör, miyofibroblastik işsi hücreler ile plazma hücresi, lenfosit ve eozinofillerin eşlik ettiği inflamatuvar infiltrattan oluşan bir neoplazmdir [9-10]. İşsi hücrelerin çoğu sitolojik olarak uniform, oval-elonge, hiperkromatik nükleuslu, küçük nükleollü ve orta derecede eozinofilik sitoplazmalı hücrelerdir. Genellikle belirgin mitotik aktivite yoktur. Sitolojik atipi genellikle gözlenmez ancak bazen bizar stromal dev hücreler görülebilir. İşsi hücreler SMA, desmin ve vimentin pozitifdir. Laringeal İMT, immünohistokimyasal olarak genellikle ALK ile pozitif boyanır [6,11,12]. Coffin ve arkadaşları ALK reaktivitesiyle sonuçlar arasındaki ilişkiyi inceledi ve ALK negatifliğinin metastazla, pozitifliğinin ise rekürrensle ilişkili olduğunu gösterdi [11]. Fakat laringeal İMT bu çalışmada çalışılmadı. Literatürde günümüze kadar laringeal İMT'de metastaz izlenen vakaya rastlanmadı.

Histopatolojik özellikler esas alındığında, İMT bulgularını taklit eden ayırıcı tanı listesi arasında;

inflame leiomyosarkom, nodüler fasiit, fibromatozis, myofibroblastom, fibröz histiositom, inflamatuvar malign fibröz histiositom, sarkomatoid karsinom, benign ve malign düz kas tümörleri vardır [13].

İnflamatuvar myofibroblastik tümör, işçi hücreli skuamöz karsinomdan da ayırt edilmelidir. Mitotik figürler olmasına rağmen atipik mitozun olmamasıyla İMT, işçi hücreli skuamöz karsinomdan ayrılır [3].

Literatürde terapötik yaklaşım steroid, kemo-terapi, radyoterapi gibi medikal tedavilerden lokal eksizyon, larenjektomi gibi cerrahi tedavilere kadar çeşitlidir [8]. Cerrahi eksize edilen vakalardan sadece çok azında lokal rekürens raporlandı.

Sonuç olarak İMT, larinkste genelde erişkin çağda görülmesine rağmen bizim olgumuz pediatrik yaş gurubundaydı. Çocukluk çağında vokal kordda lezyon izlendiğinde ayırıcı tanıda İMT mutlaka düşünülmalıdır. Histopatolojik incelemede, malign laringeal tümörlerden mutlaka ayırt edilmelidir. Doğru teşhis, hastada gereksiz agresif tedavi yöntemlerinden kaçınmayı ve inflamatuvar myofibroblastik tümör için yeterli olan organ koruyucu komplet rezeksiyon yapılmasını sağlar.

KAYNAKLAR

- Coffin CM, Fletcher CDM. Inflammatory myofibroblastic tumour. In: Fletcher CDM, Unni KK, Mertens F, eds. WHO Classification of Tumors: Pathology and Genetics of Tumors of Soft Tissue and Bone. Lyon, France: IARC Press; 2002:91–94.
- Keen M, Cho HT, Savetsky L. Pseudotumor of the larynx--an unusual cause of airway obstruction. Otolaryngol Head Neck Surg 1986; 94:243-246.
- Wenig BM, Devaney K, Bisceglia M. Inflammatory myofibroblastic tumor of the larynx. A clinicopathologic study of eight cases simulating a malignant spindle cell neoplasm. Cancer 1995;76:2217-2229.
- Alhumaid H, Bukhari M, Rikabi A, et al. Laryngeal myofibroblastic tumor: case series and literature review. Int J Health Sci (Qassim) 2011;5:187-195.
- Rodrigues M, Taylor RJ, Sun CC, Wolf JS. Inflammatory myofibroblastic tumor of the larynx in a 2-year-old male. ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec 2005;67:101-105.
- Völker HU, Scheich M, Höller S, et al. Differential diagnosis of laryngeal spindle cell carcinoma and inflammatory myofibroblastic tumor - report of two cases with similar morphology. Diagn Pathol 2007;2:1.
- Idrees MT, Huan Y, Woo P, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of larynx: a benign lesion with variable morphological spectrum. Ann Diagn Pathol 2007;11:433–439.
- Biron VL, Waghay R, Medicott SA, Bosch JD. Inflammatory pseudotumours of the larynx: three cases and a review of the literature. J Otolaryngol Head Neck Surg 2008;37:32-38.
- Coffin CM, Watterson J, Priest JR, Dehner LP. Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). A clinicopathologic and immunohistochemical study of 84 cases. Am J Surg Pathol 1995;19:859–872.
- Brcić I, Brcić L, Hutinec Z, et al. Laryngeal inflammatory myofibroblastic tumor in a man: a case report. Coll Antropol 2010;34:1127-1129.
- Coffin CM, Hornick JL, Fletcher CD. Inflammatory myofibroblastic tumor: comparison of clinicopathologic, histologic, and immunohistochemical features including ALK expression in atypical and aggressive cases. Am J Surg Pathol 2007;31:509–520.
- Ni C, Xu YY, Zhou SH, Wang SQ. Differential diagnosis of inflammatory myofibroblastic tumour and low-grade myofibroblastic sarcoma: two case reports with a literature review. J Int Med Res 2011;39:311–320.
- Corsi A, Ciofalo A, Leonardi M, et al. Recurrent inflammatory myofibroblastic tumor of the glottis mimicking malignancy. Am J Otolaryngol 1997;18:121-126.