

OLGU SUNUMU

Gökhan Erbağ¹,
Yıldıray Topçu¹,
İbrahim Hakkı Dursun¹
İlhan Dolaşık¹
Muhammed Maden¹
Uğur Korkmaz²
Ömer Şentürk²
Sadettin Hülagü²

¹ Kocaeli Üniversitesi Tıp
Fakültesi İç Hastalıkları AD,
Kocaeli

² Kocaeli Üniversitesi Tıp
Fakültesi İç Hastalıkları AD,
Gastroenteroloji BD,
Kocaeli

Yazışma Adresi:
Dr. Gökhan Erbağ
Kocaeli Üniversitesi Tıp Fakültesi
İç Hastalıkları AD, Kocaeli
Tel: 0262 303 81 11
Faks: 0262 3038748
Email: gokhanerbag@hotmail.com

Konuralp Tıp Dergisi
e-ISSN1309-3878
konuralptipdergi@duzce.edu.tr
konuralpgeneltip@gmail.com
www.konuralptipdergi.duzce.edu.tr

Crohn Hastalığına Eşlik Eden Perianal Bölgede Lenfanjioma Sirkumskriptum: Olgu Sunumu

ÖZET

Lenfanjiyoma sirkumskriptum lenfatik kanalların benign malformasyonu olup edinsel lezyonlar genellikle radikal cerrahi, genital tüberküloz, pelvik radyasyon ve Crohn hastalığı ile birlikte görülür. Karın ağrısı ve perianal bölgede kaşıntı ve akıntı şikâyeti ile başvuran 26 yaşındaki hastanın anal bölgede ciltten kabarık veziküler lezyonlar, kolonoskopisinde ileoçekal valvde polipoid görünümlü kütleler ve yer yer aftöz ülserler tespit edildi. Perianal bölgeden alınan biopsi lenfanjiyoma sirkumskriptum, kolonoskopik biopsi Crohn hastalığı ile uyumlu olarak bulundu. Lenfanjioma sirkumskriptum perianal bölgede de görülebilen, tedavisi güç lezyonlardır. Özellikle karın ağrısı ile başvuran ve benzer cilt lezyonları olan genç hastalarda Crohn hastalığı akılda tutulmalıdır.

Anahtar kelimeler: Lenfanjiyoma sirkumskriptum, Crohn hastalığı, Perianal bölge

Lymphangioma Circumscriptum in Perianal Region Which Accompanied With Crohn's Disease: A Case Report

ABSTRACT

Lymphangioma circumscriptum is benign malformation of the lymphatic ducts and acquired lesions generally accompany with radical surgery, genital tuberculosis, pelvic radiation and Crohn's disease. Swollen skin vesicular lesions in anal region, polypoid-looking masses and aphthous ulcers in patches were found at ileocecal valve in his colonoscopy in 26-year-old patient admitted with complaints of abdominal pain, itching and flow in the perianal region. Biopsy lymphangioma circumscriptum taken from the perianal region was found to be compatible with colonoscopic biopsy Crohn's disease. Lymphangioma circumscriptum are difficult-to-treat lesions that can also be seen in the perianal region. Crohn's disease should be kept in mind especially in young patients admitted with abdominal pain and who have similar skin lesions.

Key words: Lymphangioma circumscriptum, Crohn's disease, Perianal region

GİRİŞ

Lenfanjiyoma sirkumskriptum dermis, subkutan tabaka ve nadiren kasa yayılabilen lenfatik kanalların benign malformasyonudur (1). Sıklıkla ekstremitelerin proksimalinde görülmesine rağmen nadiren de vulva ve oral mukozada da görülebilir.

Lenfanjiyomaların; sirkumskriptum, kavernoöz ve kistik olmak üzere 3 tipi vardır (2). Lenfanjiyoma sirkumskriptum konjenital veya edinsel olarak görülebilen bir hastalıktır (3). En yaygın olarak görülen lenfanjiyoma sirkumskriptum sıklıkla kadınlarda görülen ve genellikle konjenital lezyonlardır. Kazanılmış Lenfanjiyoma sirkumskriptum için risk faktörleri radikal cerrahi, genital tüberküloz, pelvik radyasyon ve Crohn hastalığıdır (4). Bu olguda anal bölgede mukozadan kabarık lezyonlar ve karın ağrısı şikâyeti ile başvurup Crohn hastalığı ve lenfanjiyoma sirkumskriptum tanısı konan bir hasta sunulacaktır.

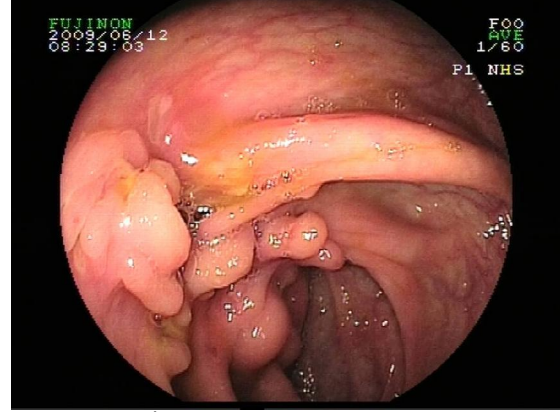
OLGU

Bir yıldır karın ağrısı ve anal bölgede kaşıntı, akıntı şikâyetleri olan ve Kocaeli Üniversitesi Tıp Fakültesi İç Hastalıkları AD, Gastroenteroloji BD'na başvuran 26 yaşındaki erkek hastanın fizik muayenesinde anal bölgede ciltten kabarık, hafif seröz akıntılı veziküler lezyonlar (**Resim 1**) ve sağ alt karında hassasiyet mevcuttu. Diğer sistem muayenelerinde özellik saptanmadı. Laboratuvar incelemelerinde sedimentasyon: 52 mm/saat, lökosit: $8400/\text{mm}^3$, hemoglobin: 11,3/dl, hematokrit: %35,4, trombosit: $591.000/\text{mm}^3$, transferrin saturasyonu: %16, ferritin: 123 ng/ml olarak saptandı.

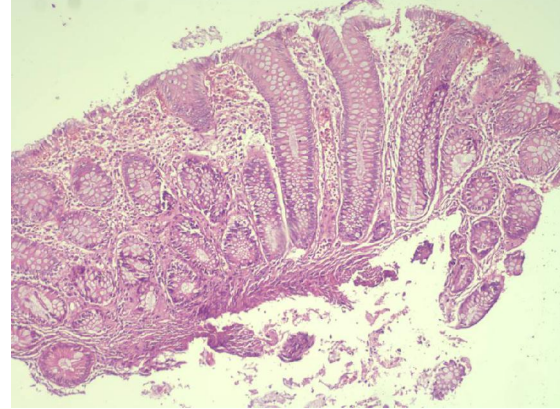
Sağ alt karın ağrısı ve anemi olması nedeniyle yapılan kolonoskopisinde ileoçekal bölge oldukça düzensiz, polipoid görümlü kitleler ve yer yer aftöz ülserler, ileum girişi oldukça daralmış olarak izlendi (**Resim 2**).



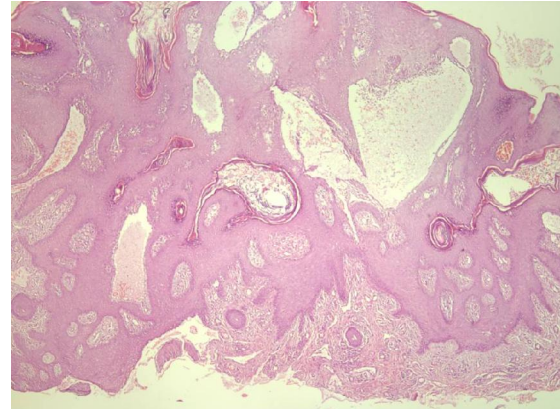
Resim 1. Anal bölgede ciltten kabarık, hafif seröz akıntılı veziküler lezyonlar



Resim 2. İleoçekal bölge düzensiz, polipoid görümlü kitleler ve yer yer aftöz ülserler



Resim 3. İleoçekal bölge mukozasında glandüler düzensizlik, lamina propriada kronik yangı (HEX100)



Resim 4. Anüste squamöz epitelle döşeli subepitelyal alanda kistik genişlemiş damar yapıları (HEX100)

Darlık alanından endoskopta geçilemedi. İleoçekal bölgedeki anormal mukozal alandan alınan biopsilerde mukozada glandüler düzensizlik, lamina

propriada kronik yangı izlendi (**Resim 3**). Tespit edilen bulgular ışığında Crohn hastalığı tanısı kondu. Hastanın anal bölgedeki lezyonlarına yapılan biopside epidermiste papillamatozis, rete uçlarında uzama ve birleşme tarzında proliferasyon, yüzeysel dermiste, papiller dermiste endoteli belirgin, duvarlar hafif kalınlaşmış kavernöz lenfatik damarlar saptanarak lenfanjioma sirkumskriptum tanısı konuldu (**Resim 4**).

Hastaya Crohn hastalığına yönelik budesonid 3x3 mg ve azotiopürin 2x50 mg tedavisi başlandı. Anal bölgedeki Lenfanjiyoma sirkumskriptum için hastaya kriyoterapi uygulandı. Hastanın 2 ay sonraki kontrollerinde karın ağrısı ve anal bölgedeki lezyonlarında belirgin iyileşme, kaşıntı ve akıntı şikâyetinde gerileme izlendi.

TARTIŞMA

Crohn hastalığında ekstraintestinal bulguların en sık görülen lokalizasyonu cilttir. Hastalığın seyri sırasında %22-44 oranında çeşitli cilt lezyonları (oral, perianal veya ekstremite) görülebilmektedir (2). Lenfanjiyoma sirkumskriptum göğüste, aksillada, dilde ve oral kavitede yaygın olarak görülürken nadiren vulvada görülür. Konjenital formları yaşamın ilk yıllarında ortaya çıkarken, kazanılmış form genellikle medikal durumun barsak hastalığı, enfeksiyonlar vb) seyri sırasında görülebilmektedir (5).

Vakamızda Crohn hastalığı ve perianal lenfanjioma sirkumskriptum birlikteliği söz konusu idi. İlginç olarak İngilizce literatürde Crohn hastalığı ile birlikte görülen perianal bölgenin tutulduğu lenfanjioma sirkumskriptum vakasına rastlamadık.

Literatürdeki diğer genital lenfanjioma sirkumskriptum vakaları vulvar tutulumlu kadınlardı.

Literatürde bildirilmiş Crohn hastalığı ile birlikte görülen lenfanjiyoma sirkumskriptum vakaları genellikle fistülize Crohn hastalığı tanısı ile takip edilen ve cilt lezyonlarının zamanla ortaya çıktığı vakalar iken (6,7) bizim vakamız ise Crohn hastalığı ve lenfanjioma tanılarını eş zamanlı alan fistülizasyonun izlenmediği bir hasta idi.

Lenfanjiyoma sirkumskriptum tedavisinin kanıtlanmış medikal tedavisi yoktur. Kesin tedavi olarak lezyon derinliğinin tespit edilerek total eksizyon önerilmektedir (8). Yine de cerrahi sonrası uzun dönemde rekürrensler görülebilir. Eğer yapılan cerrahi yüzeysel olursa aşırı büyüyen lenfatik kanallar çıkartılmadığından dolayı rekürrens riski artar (2). Alternatif tedavi yöntemleri arasında kriyoterapi, lazer tedavisi, skleroterapi ve elektrokoagülasyon sayılabilir. Her ne kadar önerilen tedavi cerrahi olmasına rağmen hastamıza lenfanjiyoma sirkumskriptum tedavisi için kriyoterapi uygulandı.

Lenfanjiyoma sirkumskriptum vakalarında uzun dönem sonuçları tam olarak bilinmemekle birlikte, bir vakada yassı hücreli karsinom geliştiği bildirilmiştir (9).

Lenfanjiyoma sirkumskriptum perianal bölgede de görülebilen tedavisi güç lezyonlardır. Özellikle karın ağrısı ile başvuran ve benzer cilt lezyonları olan genç hastalarda Crohn hastalığı akılda tutulmalıdır.

KAYNAKLAR

1. Turan V, Ergenoglu M, Yeniel O, Ulukus M. Vulvar lymphangioma circumscripium. Int J Gynaecol Obstet 2009;107(3):256-257.
2. Dikmen Y, Coşan Terek M, Akman L, Solmaz U, Zekioğlu O, Akalin T. Congenital vulvar lymphangioma circumscripium. Int J Clin Oncol 2008;13(5):458-460.
3. Haas AF, Narurkar VA. Recalcitrant breast Lymphangioma circumscripium treated by Ultrapulse carbondioxide laser. Dermatologic Surgery 1998;2:893-895.
4. Burgdorf W. Cutaneous manifestations of Crohn's disease. J Am Acad Dermatol 1981;5:689-695.
5. Smith H, Genesen MC, Feddersen RM. Dermal lymphangiomata of the vulva and laser therapy: a case report and literature review. Eur J Gynaecol Oncol 1999;20:373-378.
6. Handfield-Jones SE, Prendiville WJ, et al. Vulval lymphangiectasia. Genitourin MED 1989;65:335.
7. Bartels U, Kraus T, Sattler B et al. Therapy of extensive lymphangioma of the vulva. Zentrabl Gynakol 1995;117:120.
8. Huilgol SC, Neill S, Barlow RJ. Co2 laser therapy of vulval lymphangiectasia and lymphangioma circumscripium. Dermatol Surg 2002;28:575-577.
9. Short S, Peacock C. A newly described possible complication of lymphangioma circumscripium. Clin Oncol (R Coll Radiol) 1995;7:136-137.