

Lenfanjiyoma Sirkumskriptum: Üç Çocuk Olgu

Lymphangioma Circumscriptum: Three Case Report

Selcen KUNDAK,^a
Selda AKSU AKKAN,^b
Hülya TOSUN YILDIRIM^b

^aDeri ve Zührevi Hastalıkları Kliniği,

^bPatoloji Kliniği,

İzmir Dr. Behçet Uz Çocuk Hastalıkları ve
Cerrahisi, Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
İzmir

Geliş Tarihi/Received: 28.03.2015

Kabul Tarihi/Accepted: 02.12.2015

Yazışma Adresi/Correspondence:

Selcen KUNDAK

İzmir Dr. Behçet Uz Çocuk Hastalıkları ve

Cerrahisi, Eğitim ve Araştırma Hastanesi,

Deri ve Zührevi Hastalıkları Kliniği, İzmir,

TÜRKİYE/TURKEY

drselcen@yahoo.com.tr

ÖZET Lenfanjiyoma sirkumskriptum doğumda mevcut olabilen veya doğumdan hemen sonra ortaya çıkabilen, deride lokalize alanlarda berrak veziküller ile karakterize, nadir görülen vasküler hamartomatöz bir durumdur. Lezyonlar çoğunlukla kurbağa yumurtasını andırır şekilde küme oluşturmuş ve herpetiform yapıdadır. 3-4 mm çaplı vezikül kümecikleri berrak olabildiği gibi, pembe, kırmızı veya siyah renkte kanama içerebilmektedir. Genellikle alt ekstremitenin proksimal kısımları, kalça, kasık, aksiller kıvrım, boyun ve özellikle dilde lezyonlar görülebilmektedir. Doğumsal lezyonların yanında edinsel olarak da ortaya çıkabilmektedir. Bu şekilde bildirilmiş vakaların lokalizasyonu genellikle vulvar ve perianal yerleşimlidir ve cerrahi girişimler, radyoterapi ve enfeksiyonlar sonrası gelişebilmektedir. Bu çalışmada, farklı lokalizasyonda, farklı klinik progresyonlar gösteren üç doğumsal Lenfanjiyoma sirkumskriptum olgusu bildirilmiştir.

Anahtar Kelimeler: Lenfanjiyoma; lenfanjiyom,kistik

ABSTRACT Lymphangioma circumscriptum is a rare hamartomatous condition characterized by clear vesicles which can be present at birth or soon after in localized areas of the skin. Lesions are often reminiscent of the frog spawn, grouped and in a herpetiform pattern. As vesicles of 3-4 mm in diameter may be clear, they consist of pink, red, black haemorrhage. The most common locations are proximal aspect of the limbs, buttock, groin, axillary folds,neck and oral mucosa especially the tongue. In addition to congenital lesions, acquired lesions may also occur. Such lesions are usually located vulvar and perianal area and can be seen after surgical procedures, radiation therapy and infection. In this article, three cases of congenital Lymphangioma circumscriptum which are in different locations and which shows different clinical progression are reported.

Key Words: Lymphangioma; lymphangioma, cystic

Türkiye Klinikleri J Dermatol 2016;26(1):38-44

Lenfanjiyoma sirkumskriptum (LS) veya mikrokistik lenfatik malformasyon, genellikle doğumda mevcut olan veya doğumdan sonraki birkaç yıl içinde ortaya çıkan deri ve subkutanöz dokuları etkileyen hamartomatöz lenfatik bir malformasyondur.¹⁻¹¹ Çoğunlukla doğumsal olmakla birlikte cerrahi işlemler, travma, radyoterapi, enfeksiyonlar sonucu edinsel lenfanjiyoma olguları da bildirilmiştir. Doğumsal LS etiyolojisi tam bilinmemekle birlikte, embriyolojik dönemde lenfatik kanallardaki gelişimsel bir anomali sonucu oluştuğu düşünülmektedir. Klinik olarak 3-4 mm çapında çoğunlukla şeffaf, zaman zaman vezikül içindeki kanamaya bağlı olarak kırmızı-siyah renk değişikliği izlenebilen, herpetiform veya grup

oluşturmuş yapıda gözlenmektedir. Bununla birlikte, nadiren şiddetli yayılım gösterebildiği de izlenebilmektedir.¹⁻¹¹

Üç çocuk olguda farklı klinik görünüm ve farklı klinik yayılım gösteren doğumsal LS bildirilmiştir.

OLGU SUNUMLARI

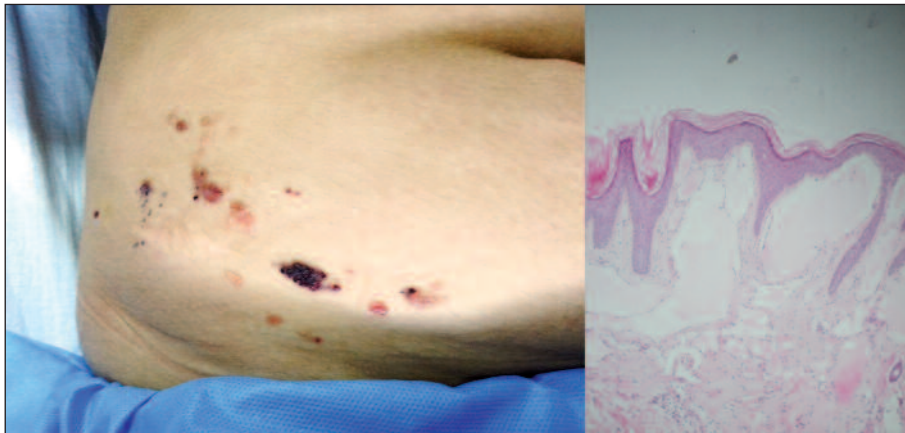
OLGU 1

On dört yaşında ki kız olgu, sağ kasık bölgesindeki kabarıklıklar şikâyeti ile başvurdu. Öyküsünden, lezyonların üç, dört yaşlarında sağ kasık bölgesinde yaklaşık 1,5 cm'lik bir alanda içi berrak görünümde veziküller şeklinde başladığı ve giderek yayıldığı, zamanla içlerinde kırmızı, pembe, siyah renk değişikliği olduğu ve lezyonların yine hastanemizde cerrahi eksizyon ile alındığı öğrenildi. Cerrahi eksizyondan yaklaşık dört yıl sonra skatris kenarından tekrar başladığı ve giderek arttığı öğrenildi. Yakınmalarına herhangi bir semptomun eşlik etmediği öğrenilen olgunun öz geçmiş, soy geçmiş ve sistem sorgulamasında özellik belirlenmemişti. Dermatolojik muayenesinde sağ kasık bölgesinde herpetiform yapıda çoğunlukla grup oluşturmuş, yer yer izole, berrak, siyah, kırmızı renkli 2-3 mm'lik veziküller gözlemlendi. Lezyonların hemen altında eski eksizyon yerinde 2 cm'lik skatris dokusu izlendi (Resim 1a). Kasık bölgesinde bilateral ödem ve lenfadenopatiye rastlanmadı.

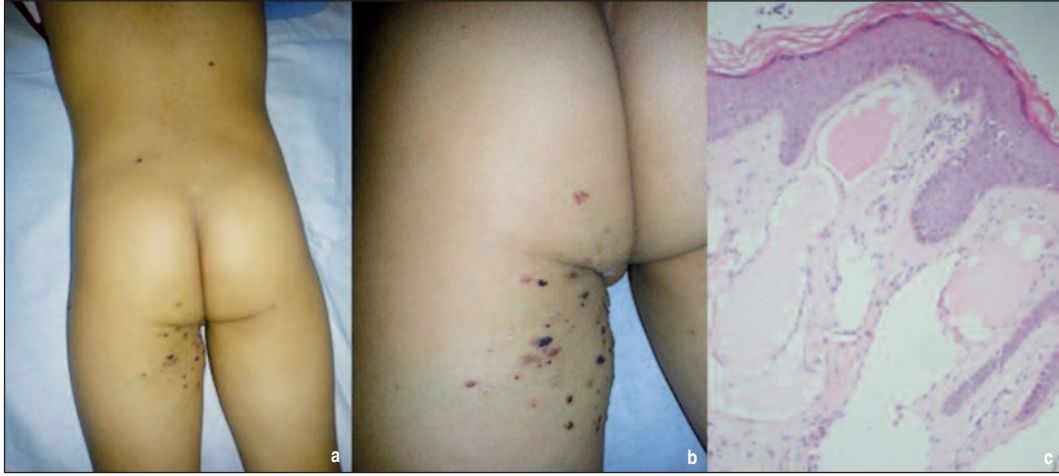
Lezyonun histopatolojik incelemesinde; hiperkeratoz, papillomatoz, retelerde belirgin uzama ile birlikte irregüler akantoz görüldü. Papiller dermiste yassı epitel ile döşeli kavernoöz vasküler boşluklar izlendi. İmmünohistokimyasal incelemede, vasküler boşlukları döşeyen tek katlı yassı epitel CD31 pozitif, CD34 negatif idi (Resim 1b). Klinik, histopatolojik ve immünohistokimyasal bulguların sonucunda LS tanısı konulan olguya tedavi seçenekleri ve nüksler konusunda bilgi verildi. Komplikasyonu ve ek semptomu olmayan olgu tedavisiz olarak takibe alındı.

OLGU 2

Altı yaşında ki erkek olgu, sol kalça ve bacak bölgesindeki kabarıklıklar nedeni ile getirildi. Şikâyetlerinin doğumdan bir, iki yıl sonra sol kalça bölgesinde başlayıp, sol bacak arka ve iç kısma, bele ve son zamanlarda da sırtta yayıldığı, tanımlanıyordu bu yakınmalara herhangi bir semptomun eşlik edindiği öğrenildi. Olgunun öz geçmiş, soy geçmiş ve sistem sorgulamasında herhangi bir özellik belirlenmedi. Dermatolojik muayenesinde, sol gluteal bölgenin alt kısmından sol bacak iç kısmına dağılan, bel ve sırt bölgesine de yayılmış, çoğunluğu grup oluşturmuş, bazıları izole, içleri berrak, bazıları kanamalı 2-3 mm çaplı veziküller izlendi. Sol bacak proksimal kısmı sağ bacak proksimal kısmına göre yaklaşık 0,5 cm daha geniş olarak ölçüldü (Resim 2a, b). Her iki inguinal bölgede



RESİM 1: a) Olgu 1 klinik görünümü. Herpetiform, özellikle yayılım gösteren grup oluşturmuş kanamalı ve berrak görünümde 1-3 mm çaplı veziküller (Kurbağa yumurtası görünümü). **b)** Olgu 1 Histopatolojik görünüm. Süperfiyel dermiste düzensiz ve genişlemiş lenf damarları (HE, x100). (Renkli hâli için Bkz. <http://www.turkiyeklinikleri.com/journal/dermatoloji-dergisi/1300-0330/>)



RESİM 2: a, b) Olgu 2 klinik görünümü. Herpetiform yapıda uyluktan başlayıp bel ve sırt bölgesine yayılım gösteren, grup oluşturmuş kanamalı ve berrak görünümde 1-3 mm çaplı veziküller. c) Hasta 2 histopatolojik görünüm. Süperfişyel dermiste düzensiz ve genişlemiş lenf damarları (HE, x100). (Renkli hâli için Bkz. <http://www.turkiyeklinikleri.com/journal/dermatoloji-dergisi/1300-0330/>)

lenfadenopatiye rastlanmadı. Olguya yapılan alt ekstremitte venöz doppler incelemesinde; sol taraf ana yüzeyel ve derin femoral venler ile popliteal ven ve krural ven dalları patent olarak izlendi. Lezyon düzeyinde safen ven çapı artmış ve 4 mm olarak ölçülmüştür.

Lezyonun histopatolojik incelemesinde; hiperkeratoz, papillomatoz, retelerde belirgin uzama ile birlikte irregüler akantoz görüldü. Papiller dermiste yassı epitel ile dōşeli kavernöz vasküler boşluklar izlendi. İmmünohistokimyasal incelemede vasküler boşlukları dōşeyen tek katlı yassı epitel CD31 pozitif, CD34 fokal zayıf pozitif saptandı (Resim 2b). Olguya klinik, histopatolojik ve immünohistokimyasal bulguların sonucunda LS tanısı konuldu. Olgu daha ileri vasküler malformasyonlarla birliktelik açısından kalpdamar cerrahisi birimi ile birlikte takibe alınmıştır.

OLGU 3

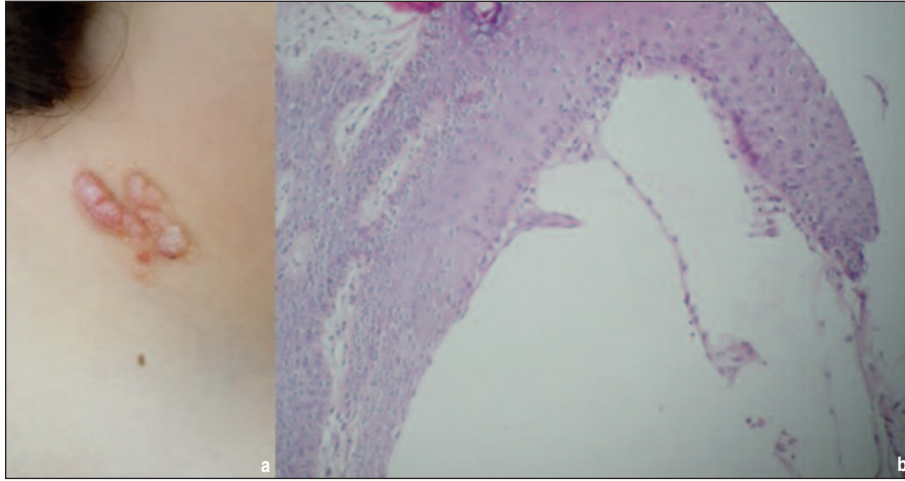
Dokuz yaşında kız olgu, sağ boyun yan kısmındaki kabarıklıklar şikâyeti ile getirildi. Şikâyetlerinin yaklaşık bir yaşında iken ortaya çıktığı öğrenildi. Bu şikâyetlere ek başka bir semptomu olmayan olgunun öz geçmişi, soy geçmişi ve sistem sorgulaması özellik taşıymıyordu. Dermatolojik muayenesinde, boynun sol yanında 2 cm'lik bir alanda herpetiform ve grup oluşturmuş yapıda 4-5 mm'lik berrak görümlü vezikülü andıran lez-

yonlar izlendi (Resim 3a). Zaman zaman keseciklerin içinde spontan ya da kaşıma sonrası kırmızı, siyah renk değişikliği oluşabildiği öğrenildi. Boyun bölgesine yapılan ultrasonografi ve venöz doppler incelemesi normal olarak değerlendirildi.

Lezyonun histopatolojik incelemesinde hiperkeratoz, papillomatoz, retelerde belirgin uzama ile birlikte irregüler akantoz görüldü. Papiller dermiste yassı epitel ile dōşeli kavernöz vasküler boşluklar izlendi. İmmünohistokimyasal incelemede vasküler boşlukları dōşeyen tek katlı yassı epitel CD31 pozitif, CD34 fokal zayıf pozitif saptandı (Resim 3b). Olguya klinik, histopatolojik ve immünohistokimyasal bulguların sonucunda LS tanısı konuldu. Cerrahi eksizyonu kabul etmeyen olgu izlem altına alındı.

TARTIŞMA

LS veya mikrokistik lenfatik malformasyon, deri ve subkutanöz dokuları etkileyen, nadir görülen hamartomatöz vasküler bir malformasyondur. Etiyolojisi bilinmemektedir.¹ Lezyonların, doğumda mevcut bulunması ya da çok erken yaşlarda görülmeye başlaması nedeni ile embriyolojik gelişim sürecinde, lenfatik kanallara bağlanmakta yetersizlik gösteren lenfatik keselerin dilatasyonu sonucu oluştuğu düşünülmektedir.²⁻⁴ Ayrıca Vasküler endotelial büyüme faktörü C (VEGF-C ve VEGF



RESİM 3: a) Olgu 3'te Boynun sol yanında 2 cm'lik bir alanda herpetiform yapıda ve grup oluşturmuş 4-5 mm'lik berrak görünümlü vezikülü andıran lezyonlar. **b)** Papiller dermiste yassı epitel ile döşeli kavernöz vasküler boşluklar (HE, x200).

(Renkli hâli için Bkz. <http://www.turkiyeklinikleri.com/journal/dermatoloji-dergisi/1300-0330/>)

D)'nin lenfatik endotelial hücre reseptörleri üzerine etkisinin LS gelişiminde rol oynayabileceği iddia edilmektedir.⁴ Bununla birlikte tekrarlayan sellülit, Crohn hastalığı, radyoterapi, cerrahi girişimler sonrası ve lenfödem takiben tanımlanmış edinsel LS hastaları da bildirilmiştir.²⁻¹² En sık lokalizasyon dil, bacakların proksimal kısımları, kasık, aksilla, boyun ve gövdedir.¹⁻¹³ Literatürde edinsel LS hastalarının çoğunlukla vulvar yerleşimli olduğu görülmektedir. Bununla birlikte doğumsal vulva ve skrotum yerleşimli LS hastaları da bildirilmiştir.^{6,7} Lezyonlar çoğunlukla kurbağa yumurtasını andıran ince duvarlı, berrak görünümlü vezikül kümeleri ile karakterizedir.¹⁻¹³ Veziküller grup oluşturmaya eğilimli ve çoğunlukla herpetiform yapıdadır. Literatürde dermatomal lokalizasyonda tutulum gösteren iki zosteriform LS hastası bildirilmiştir.¹⁴ Sıklıkla, vezikül içinde pembe yada koyu kırmızı renkte görünüm oluşturan kanama görülebilmektedir. Kendiliğinden veya önemsiz bir travma sonrası oluşan bu durum; hem kanamayı hem de arteriyovenöz lezyonların üst üste bindiğini düşündürmektedir. Bu gibi lezyonlar "hematolenfanjiyoma" olarak tanımlanmaktadır.^{1,2} LS; derinin tutulma derecesi ön plana alınarak klasik (1 cm²'den daha fazla alan) ve lokalize (1 cm²'den daha az alan) olmak üzere iki gruba ayrılabilir. Bununla birlikte, her iki formun birlikte görülebildiği hastalar da bildirilmiştir.²

Bizim üç olgumuzda da doğumdan kısa bir süre sonra lezyonların herpetiform bir yapıda ortaya çıktığı, grup oluşturduğu, berrak ve/veya kanamalı veziküller gözlemlendiği öğrenildi. Olgu 22'de (Resim 2a) ise herpetiform yapıda başlayan bu grup oluşturmuş lezyonların sol bacak proksimal kısım arkasından başlayarak kalçaya ve sırta yayıldığı berrak ve kanamalı veziküllerin birlikte izlendiği görülmüştür. Bu olgunun alt ekstremitte Doppler incelemesinde yüzeysel venöz yapılar da dilatasyon gözlenmesi derin venöz ve lenfatik yapılar da daha ileri drenaj bozukluğu olabileceğini düşündürmüş ve olgu kalp-damar cerrahisi birimince değerlendirilerek uzun süreli izleme alınmış ve planlanan "pulse dye lazer" tedavisinin ertelenmesi uygun görülmüştür. Kudur ve ark.nın çalışmasında, uyluk ve kalça yerleşimli invaziv doğumsal LS tanımlanmıştır. Lezyonların cerrahi eksizyondan bir yıl sonra sağ uyluktan ve kalçadan tekrar başlayıp beş yıl içinde derin fasiya, kas, abdomen hatta iliak ve femoral gibi büyük damarlara kadar yayılım gösterdiği bildirilmiştir.¹⁵ Narang ve ark. da benzer şekilde eksizyondan altı ay sonra aynı lokalizasyonlarda tekrar başlayan perianal, kalça ve sol bacak proksimal yerleşimli doğumsal LS tanımlamışlardır. Hasta manyetik rezonans görüntüleme yöntemiyle değerlendirilmiş ve lezyonların subkütan doku, kas dokusu, sakral vertebra ve çevresindeki dokuya invazyon gösterdiği saptanmıştır.¹⁶ Bu

iki hastaya benzer şekilde, lezyonların alt ekstremitelerde yerleşimli olduğu olgumuzda lezyonlar yayılma eğiliminde idi ve her iki bacakta çap farkı bulunuyordu. Bu konuda otörler alt ekstremitelerde lezyonlarının genişleme eğiliminde olduğunu ve diğer şiddetli vasküler malformasyon bulguları ile ilişkili olabileceğini ve böylesi hastaların yakından izlenmesi gerektiğini önermektedir.^{1,15} Diğer iki lokalize kalan olgularımızın lezyon bölgesine uygulanan ultrasonografik ve Doppler incelemesi normal bulunmuştur.

LS'nin histopatolojisinde anahtar bulgu, birkaç eritrosit ve kalın proteinli materyal içeren geniş dilatasyon gösteren vasküler alanların varlığıdır. Endotelial hücreler, endotelial belirteçler ile değişken pozitif boyanma göstermektedir. Bu yüzden bir lenfatik dilate bir venülden tamamen ayırmak zordur.² Bizim olgularımıza uygulanan immunohistokimyasal incelemede; vasküler boşlukları döşeyen tek katlı yassı epitelyum CD31 pozitif, CD34 negatif veya fokal zayıf pozitif boyanma göstermiştir. Lenfatik sistem araştırmalarının azlığından dolayı kan ve lenfatik endotel arasında güvenilir bir belirteç eksikliği bulunmaktadır. En iyi bilinen endotelial hücre belirteci CD31 (PECAM-1: trombosit/endotelial hücre adezyon molekülü), hem kan damarları hem de lenfatik damarlar tarafından ekspres edilmektedir. Kötü bazal membran yapısı dolayısıyla lenfatik damarlar CD31 antijenine karşı geliştirilmiş antikorlarla çifte immün-boyanma ile saptana bilmektedir.³ Tanıda altın standart histopatolojik ve immünohistokimyasal inceleme olmakla birlikte, çeşitli çalışmalarda dermoskopik tanı kriterleri geliştirilmeye çalışıldığı görülmektedir.^{17,18} Dermoskopik bakıda gözlenen lakünlerin içinde kan hücreciklerinin oluşturduğu kümeciklerin alta çökmesi ve serum kısmın üstte kalması, koyudan açığa doğru bir renk geçişi oluşturmaktadır. Bu özellik gözde görülen hipopiyona benzetilmiş ve "hipopiyon benzeri görünüm" olarak tanımlanmıştır.^{17,18} Massa ve ark., 17 yaşında ki doğumsal LS'li bir erkek hastada bu özelliği tanımlamışlardır.¹⁷ Gençoğlan ve ark. da dokuz LS hastasının tamamında bu özelliği saptarken, 10 hemanjiyomlu hastanın hiçbirinde bu özelliğe rastlamadıklarını bildirmişlerdir.¹⁸ Bu

özelliğin LS'nin hemanjiyomdan ayrımında kullanılacak bir dermoskopik kriter olabileceği düşünülmektedir.^{17,18} Bizim üç olgumuz da dermoskopik inceleme yapılmış, ancak kayıt altına alınmamıştır. Bu nedenle bu özellik incelenememiştir. LS'nin histopatolojik ayırıcı tanısında öncelikle anjiyokeratomlar ve verüköz hemanjiomlar göz önüne alınmalıdır.¹

Tedavide amaç; kozmetik kaygılara ek olarak ağrı, ödem ve enfeksiyonlara yönelik olmalıdır. Bu hastalıkta kür olmadığı unutulmamalıdır.^{1,2} Asemptomatik ise tedavi edilmemesini daha doğru bulan otörler vardır.² Bununla birlikte, lenfanjiyomların primer tedavisi için çoğunlukla başvuru alan yöntem cerrahi eksizyondur. En düşük nüks oranının cerrahi eksizyon ile olduğu bildirilmekle birlikte azımsanmayacak sayıda nüks olabilmektedir. Ortalama cerrahi eksizyon ile kür oranı %75 olarak bildirilmektedir.¹¹ Bizim birinci olgumuzda cerrahi sonrası dördüncü yılda nüks gözlenmiştir. Özellikle derin subkutanöz yerleşimli olma ihtimali yüksek alt ekstremitelerde yerleşimli hastalarda derin doku eksizyonu ve ardından doku genişletme gibi düzeltici tekniklerin birlikte uygulanmasının nüks oranını azalttığı ve estetik açıdan daha tatminkâr sonuçlar sağladığı bildirilmektedir.¹⁹ Bununla birlikte, çoğu otör cerrahi tedaviyi invaziv bulmakta, diğer tedavi seçeneklerinin denenmesini ve hatta kombine tedavilerin uygulanmasını önermektedir. Cerrahi eksizyonun her hastaya uygulanamaması da diğer tedavi seçeneklerini gündeme getirmektedir.²⁰⁻²² Bunlar arasında radyoterapi, kriyoterapi, koterizasyon, skleroterapi, karbondioksit ve "pulse dye lazer" sayılabilir. Lezyon içine medikal tedaviler denenmiştir. Chakravarti ve ark., dil yerleşimi gösteren iki çocuk hastada, intralezyonel bleomisin uygulaması ile başarılı sonuç aldıklarını bildirmişlerdir.²⁰

Son yıllarda ablatif ve ablatif olmayan lazerler, LS lezyonlarının tedavisinde kullanılmış olup, her biri için değişik başarı ve nüks oranları bildirilmiştir.^{11,21,22} Literatürde az sayıda çalışma olmakla birlikte karşılaştırmalı veya kombine tedavilerin uygulandığı birkaç araştırma görülmektedir. Karbondioksit lazer ile başarılı sonuçlar bildirilmiş olsada anestezi gerektirmesi ve skatris oluşturması

gibi dezavantajları mevcuttur. LS'li yedi hastaya uygulanan karbondioksit lazer tedavisi sonrası birinci yılda iki hastada nüks gözlemlendiği bildirilmiştir. "Pulse dye lazer" uygulamaları, geçici vasküler hasara neden olarak daha az çevre doku hasarı oluşturmaktadır. Bu nedenle skatris ve pigmentasyon oluşturma riski düşüktür. Kanama gelişen semptomatik LS'li bir hastada "pulse dye lazer" uygulaması başarılı bulunmuş, ancak asemptomatik bir başka hastada yanıt alınmadığı bildirilmiştir. Kanama gelişen LS'li hastalarda tedavi seçenekleri arasında "pulse dye lazer" tedavisinin düşünülebileceği bildirilmektedir.²¹⁻²³ Railan ve ark, "pulse dye lazer" ile başarılı şekilde tedavi edilen iki LS olgusu bildirmiş ancak üçüncü yılda nüks gözlemlenmişlerdir. Karadağ ve ark. da iki hastada kanamalı lezyonlara "pulse dye lazer" diğer berrak lezyonlara ise kriyoterapi uygulamış ve kombine uygulamaların hem etkili hem de daha az nüks oranları gösterebileceğini vurgulamışlardır.²¹⁻²³ Bizim olgularımıza tedavi seçenekleri konusunda bilgi verilmiştir. Ancak üç olgumuz da herhangi bir tedavi almaksızın izlem altına alınmıştır.

LS; bu üç olguda da görüldüğü gibi birbirinden çok farklı klinik görünüm ve yaygınlıkta olabilmektedir. Çoğunlukla lokalize alanlarda sınırlı ve yüzeysel kalmakta, derin lenfatik ve vasküler yapılarda herhangi bir malformasyonun eşlik etmediği görülmektedir. Ancak bazılarının yaygınlığının değişebileceği, herpetiform ve lokalize özelliğinin dışına çıkarak ikinci olgumuzda olduğu gibi yayılabildiği unutulmamalıdır.

Özellikle alt ekstremitelerde başlangıçlı lezyonların daha yakın izleminin yapılması ve diğer vasküler malformasyonlarla birlikteliğinin araştırılması gerektiği, yine bu yerleşimdeki lezyonların invaziv olabileceği ve daha derin tutulum açısından ileri incelemelerin yapılmasının gerekliliği, tedavi seçeneklerinin hemen hepsinde cerrahi eksizyon da dâhil olmak üzere nüks olabileceğinin hasta ve hasta yakınlarına mutlaka açıklanması gerektiği, komplikasyonsuz hastalarda kozmetik kaygı yoksa tedavisiz de bırakılabileceği vurgulanmak istenmiş ve çocuk hastanesi dermatoloji kliniğine başvuran üç çocuk olgu ile bu nadir görülen vasküler hamartomatöz malformasyon literatür eşliğinde gözden geçirilmiştir.

KAYNAKLAR

- Braun-Falco O, Plewig G, Wolf HH, Burgdorf WHC. Mesenchymal and neural tumors. *Dermatology*. 2nded. Berlin: Springer Verlag; 2000. p.1575-6.
- Mansour S, Mortimer PS. Disorders of lymphatics. In: Harper J, Orange A, Prose N, eds. *Textbook of Pediatric Dermatology*. Vol. 2. 2nded. Oxford: Blackwell Publishing; 2006. p.1214-5.
- Türsen Ü. [Lymphangioma circumscriptum]. Tüzün Y, Serdaroğlu S, Erdem E, Özpoyraz M, Önder M, Öztürkcan S, editörler. *Dermatolojide Tedavi*. 1. Baskı. İstanbul: Nobel Tıp Kitabevleri; 2010. p.479-83.
- Sinha A, Phukan JP, Jalan S, Pal S. Lymphangioma circumscriptum of the vulva: report of a rare case. *J Midlife Health* 2015;6(2):913.
- Erdoğan AG, Balaban D, Koç K. [Circumscribed vulvar lymphangioma: case report]. *Türkderm* 2005;39(1):54-6.
- Aggarwal K, Gupta S, Jain VK, Marwah N. Congenital lymphangioma circumscriptum of the vulva. *Indian Pediatr* 2009;46(5):428-9.
- Haroon S, Hasan SH. Lymphangioma circumscriptum in the scrotum: a case report. *J Med Case Rep* 2012;6:233.
- Yalçınkaya Ç, Çoban G, Aka Bolat F, Çöloğlu H, Çelik H. [Vulvar lymphangioma circumscriptum after cervical cancer, a case report]. *Türk Jinekolojik Onkoloji Dergisi* 2014;17(2):28-31.
- Erbağ G, Topçu Y, Dursun İH, Dolaşık İ, Maden M, Korkmaz U, et al. [Lymphangioma circumscriptum in perianal region which accompanied with crohn's disease: a case report]. *Konuralp Tıp Dergisi* 2010;2(2):9-11.
- Özdemir B, Ayhan H, Tapısız ÖL, Ozat M, Güngör T, Müftüoğlu K, et al. [An unusual case of lymphangioma circumscriptum of the vulva]. *Gazi Medical Journal* 2009;20(4):176-7.
- İlknur T, Akarsu S, Ünlü Bıçak M, Özer E, Fetil E. [A case of lymphangioma circumscriptum treated with pulsed dye laser]. *Türkderm* 2012;46(2):107-9.
- Çalka Ö, Çankaya H, Metin A, Kösem M. [Lymphangioma circumscriptum of lip and tongue]. *Van Tıp Dergisi* 2002;9(3):95-7.
- Demirdağ HG, Özcan H. [Lymphangioma circumscriptum: a case report]. *J Turgut Ozal Med Cent* 2011;18(2):129-31.
- Patel GA, Siberstein RD, Ragi G, Schwartz RA. Zosteriform lymphangioma circumscriptum. *Acta Dermatoven* 2009;18(4):179-82.
- Kudur MH, Hulmani M. Extensive and invasive lymphangioma circumscriptum in a young female: a rare case report and review of the literature. *Indian Dermatol Online J* 2013;4(3):199-201.
- Narang T, Dipankar D, Dogra S. Lymphangioma circumscriptum and Whimster's hypothesis revisited. *Skinmed* 2011;9(2):123-4.
- Massa AF, Menezes N, Baptista A, Moreira AI, Ferreira EO. Cutaneous Lymphangioma circumscriptum-dermoscopic features. *Ann Bras Dermatol* 2015;90(2):262-4.
- Gencoglan G, Inanir I, Ermertcan AT. Hypopyon-like features: new dermoscopic criteria in the differential of the cutaneous lymphangioma circumscriptum and haeman-

- giomas? J Eur Acad Dermatol Venereol 2012;26(8):1023-5.
19. Schneider LF, Chen CM, Zurada JM, Walther R, Grant RT. Surgical management of dermal lymphatic malformation of the lower extremity. Can J Plast surg 2008; 16(4):236-8.
20. Chakravarti A, Bhargava R. Lymphangioma circumscriptum of the tongue in children: successful treatment using intralesional bleomycin. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2013;77(8):1367-9.
21. Sasaki R, Negishi K, Akita H, Suzuki K, Matsunaga K. Successful treatment of congenital lymphangioma circumscriptum of the vulva with CO2 and long-pulsed Nd:YAG lasers. Case Rep Dermatol 2014;6(1): 1-4.
22. Karadag AS, Ozlu E, Özkanlı S, Uzuncakmak TK, Akdeniz N. Two cases of lymphangioma circumscriptum successfully treated with pulsed dye laser and cryotherapy. Indian Dermatol Online J 2015;6(4) 291-3.
23. Lai CH, Hanson SG, Mallory SB. Lymphangioma circumscriptum treated with pulsed dye laser. Pediatr Dermatol 2001;18(6):509-10.