

Mandibulada Görülen İntraosseöz Hemanjiyom: Nadir Bir Olgu Sunumu

Intraosseous Hemangioma in Mandible: a Rare Case Report

^{ID} Ahmet Faruk ERTÜRK^a, ^{ID} Murat Mert ATAPEK^a, ^{ID} İlknur ÖZCAN^a, ^{ID} Merva SOLUK TEKKEŞİN^b

^aİstanbul Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Ağız, Diş ve Çene Radyolojisi ABD, İstanbul, TÜRKİYE

^bİstanbul Üniversitesi Onkoloji Enstitüsü, Tümör Patolojisi BD, İstanbul, TÜRKİYE

ÖZET Hemanjiyomlar genellikle bebeklik döneminde ortaya çıkan, yaşamın ilk aylarında hızla büyüyen ve sonrasında 5-6 yıl daha yavaş ilerleyen vasküler anomalilerdir. Kırk bir yaşındaki erkek hasta eksik dişlerin protetik olarak tamamlanması amacıyla kliniğimize başvurmuştur. Hastadan alınan panoramik radyografide 33 no.lu dişin kökünden 37 no.lu dişin distal köküne uzanım gösteren düzenli, sınırlı, yer yer radyoopasitelerin izlendiği uniloküler radyolüsent lezyon görülmüştür. Hasta, ağız, diş ve çene cerrahisi ana bilim dalına yönlendirilmiştir. Bu olgu sunumunun amacı, literatüre katkı sağlamaktır.

ABSTRACT Hemangiomas are usually vascular anomalies that develop rapidly during the first months of life in infancy and then progress slowly for 5-6 years. Forty one-year-old male patient applied to our clinic for the prosthetic completion of missing teeth. Panoramic radiograph taken from the patient showed unilocular radiolucent lesion with regular limited, localized radiopacities extending from the root of tooth 33 to the distal root of tooth 37 the patient was referred to the department of oral, dental and maxillofacial surgery the aim of this case report is to contribute to the literature.

Anahtar Kelimeler: Hemanjiyom; kortikal kemik; mandibula; patoloji; oral patoloji; radyoloji

Keywords: Cortical bone; hemangioma; mandible; pathology; oral pathology; radiology

Hemanjiyomlar, genellikle bebeklik döneminde ortaya çıkan yaşamın ilk aylarında hızla büyüyen ve sonrasında 5-6 yıl daha yavaş ilerleyen vasküler anomalilerdir.¹ 1980'li yıllardan önce vasküler anomaliler hemanjiyom olarak adlandırılmıştır.² Mulliken ve ark. tarafından 1982 yılında bir standardizasyon oluşturmak amacıyla vasküler anomaliler 2 grupta sınıflandırılmıştır.¹⁻⁶ Uluslararası Vasküler Anomalileri Araştırma Derneği (ISSVA) tarafından baş ve boyunda görülen vasküler anomaliler, vasküler tümörler (örneğin konjenital hemanjiyom, intraosseöz hemanjiyom, vb.) ve vasküler malformasyonlar (örneğin arteriyovenöz malformasyonlar vb.) olmak üzere 2'ye ayrılmıştır.^{3,7-9} İntraosseöz hemanjiyomlar genellikle, vücudun herhangi bir yerinde ortaya çıkabilir, ancak vakaların %40'ında baş ve boyunda izlenmiştir.^{10,11} İntraosseöz hemanjiyomlar genellikle, asemptomatik

tiktir ancak bazen yavaş büyüyen sert bir kitle, spontan kanama, pulsasyon hissi veya mobil dişler şeklinde ortaya çıkabilir.¹² İntraosseöz hemanjiyomlar, tüm intraosseöz tümörlerin %1'inden azını oluşturan nadir anomalilerdir.¹³ Mandibulada görülen arteriyovenöz malformasyonlar, diş eti kanaması, mobilite, şişlik, yumuşak dokularda renk değişikliği ve asimetri gibi çeşitli semptomlara neden olabilen, oldukça nadir vasküler malformasyonlardır.¹⁴ Bu olgu sunumunun amacı, literatüre katkı sağlamaktır.

OLGU SUNUMU

Bu olgu sunumu, 2018 yılında Türk Dişhekimleri Birliği Kongresi'nde poster olarak sunulmuştur. Kırk bir yaşındaki erkek hasta, eksik dişlerin protetik olarak tamamlanması için İstanbul Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesine başvurdu. Hastadan alınan

Correspondence: Ahmet Faruk ERTÜRK

İstanbul Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Ağız, Diş ve Çene Radyolojisi ABD, İstanbul, TÜRKİYE/TURKEY

E-mail: afebty@gmail.com



Peer review under responsibility of Türkiye Klinikleri Journal of Dental Sciences.

Received: 12 Jun 2019

Received in revised form: 09 Jul 2019

Accepted: 11 Jul 2019

Available online: 27 Oct 2020

2146-8966 / Copyright © 2020 by Türkiye Klinikleri. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

anamnezde okülofaringodistal miyopati (kasları etkileyen nadir görülen herediter bir hastalık) tanısı olduğu öğrenildi. Hastadan gönüllü onam formu alındı. Hastadan alınan panoramik radyografide mandibula posteriorda vital olan 33 no.lu dişin kökünden yine vital olan 37 no.lu dişin distal köküne uzanım gösteren düzenli, sınırlı, yer yer radyoopasitelerin izlendiği uniloküler radyolüsent lezyon tesadüfen görülmüştür (Resim 1).

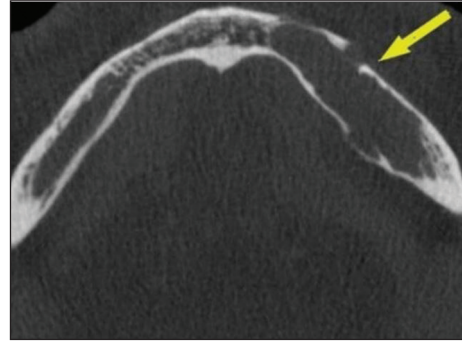
İntraoral olarak herhangi bir patolojik bulgu izlenmemiştir. Odontojenik keratokist, travmatik kemik kisti ve unistik ameloblastoma ön tanılarıyla hastadan konik ışınli bilgisayarlı tomografi (BT) alınmıştır. Alınan tomografide 33 no.lu dişin kökünün distaliyle 37 no.lu dişin distal kökünün, distali arasında mandibular kanalı içine alan, vestibül ve lingual kortikal kemikte perforasyona neden olan, düzenli, sınırlı uniloküler hipodens bölge izlenmiştir (Resim 2).

Konik ışınli BT’de bukkal kortikal kemikte yıkımın izlenmesi sonucunda ilgili lezyonun yumuşak dokudaki uzantılarını da tespit etmek ve diğer lezyonlarla ayırıcı tanısını koyabilmek amacıyla manyetik rezonans görüntüleme (MRG) yapılmıştır. MRG’de T1 sekansta mandibula, sol posteriorda uniloküler izointens bölge izlenmiştir. T2 sekansta mandibula, sol posteriorda kemik içerisinde bulunan ve lingual bölgede yumuşak dokuya uzanım gösteren uniloküler hiperintens bölge izlenmiştir (Resim 3).

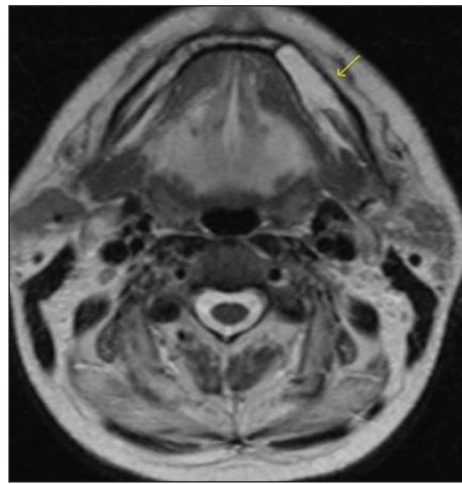
Hasta, ağız, diş ve çene cerrahisi ana bilim dalına yönlendirilmiştir. Yapılan histopatolojik değerlendirme sonucu hastaya intraosseöz hemanjiyom tanısı konulmuştur. Histopatolojik incelemede hematoksilen-eozin boyamada bazı kırmızı kan hücrelerinin gözleendiği, tek bir endotelial hücre tabakasıyla



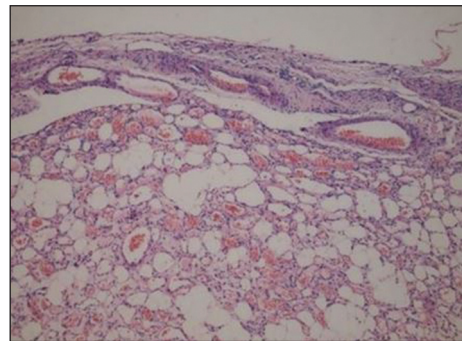
RESİM 1: Hastadan alınan panoramik grafinin ilgili lezyonu içeren kesiti.



RESİM 2: Hastadan alınan konik ışınli bilgisayarlı tomografi aksiyel kesiti. Bu kesitte, lezyonun mandibula sol posterior bölgede bukkal kortikal kemikte yıkıma neden olduğu görülmektedir.



RESİM 3: Hastanın manyetik rezonans görüntülemesinde T2 sekansta: T2 sekansta sıvı viskozitesindeki (kistik sıvılar, venöz kanlanmalar vb.) parlama, arteriyovenöz malformasyonu düşündürmüştür.



RESİM 4: Histopatolojik incelemede hematoksilen-eozin (H&E) boyamada 100 kat büyütmede (x100) bazı kırmızı kan hücrelerinin gözleendiği, tek bir endotelial hücre tabakasıyla kaplı, küçük boyutta çoğalan kan damarları izlenmiştir.

kaplı, küçük boyutta çoğalan kan damarları izlenmiştir (Resim 4).

TARTIŞMA

Vasküler lezyonlar, iyi huyludan hayati tehlike arz eden olgulara kadar uzanan geniş yelpazeli hastalıklardır. Bu nedenle, uygun hasta yönetiminde doğru tanı önemlidir.⁸ Mandibulada görülen santral intraosseöz hemanjiyomlar oldukça nadir lezyonlardır.¹⁵ Literatürde hemanjiyomlar, sıklıkla molar premolar bölgesinde bildirilmiştir.¹⁶ Vakamızda da intraosseöz hemanjiyom, literatürle uyumlu olarak mandibula posterior bölgede izlenmiştir. Ayırıcı tanılar arasında odontojenik tümörler, Langerhans hücreli histiyositozis, ameloblastoma, osteosarkom, multipl miyelom, dev hücreli granüloma, odontojenik miksom, eozinofilik granülom, kistik lezyonlar ve fibroz displazi bulunur.^{8,12,13,17,18} Bu lezyonun, ayırıcı tanı olarak görülmemesi cerrahi girişim sırasında önemli kanama kaybına neden olabilir.¹² Vakaların yarısından fazlası yaşamın ikinci 10 yılında görülmüş ve kadınlarda daha sık rastlandığı bildirilmiştir.^{17,19-21} Hastamız literatürden farklı olarak beşinci 10 yılında ve erkek hastadır. Histolojik olarak hemanjiyomlar, fibroz bağ dokusu stromayla serpiştirilmiş, değişken büyüklükte vasküler boşluklar oluşturan bir endotel hücrelerinin kütesinden oluşur.¹⁷ İntraosseöz hemanjiyomun radyografik görünümü patolojik olarak karakteristik olmayıp, diğer birçok kemik lezyonunu taklit edebilir.¹⁸ Diagnostik radyolojik incelemeler arasında konvansiyonel radyografların yanı sıra BT ve MRG yer alır. BT, trabeküler yapısı bulunan sert dokuların görüntülenmesinde kullanılırken MRG, yumuşak dokular ve invaze lezyonların yumuşak dokulardaki derinliğini görmek için oldukça etkili olup, cerrahi tedavilerin planlanmasında oldukça yardımcıdır.^{12,22-24} Hastamızda konik ışıklı BT ile lezyonun kemik dokusu üzerindeki etkilerini, il-

gili bölgedeki kemik yıkımları incelenirken, MRG ile yumuşak dokudaki etkileri incelenmiştir. İntraosseöz hemanjiyomlar, operasyon sırasında kanamalara bağlı ciddi komplikasyonlara neden olmaması açısından radyolojik olarak ön tanı konulabilmesi önemlidir.

Finansal Kaynak

Bu çalışma sırasında, yapılan araştırma konusu ile ilgili doğrudan bağlantısı bulunan herhangi bir ilaç firmasından tıbbi alet, gereç ve malzeme sağlayan ve/veya üreten bir firma veya herhangi bir ticari firmadan, çalışmanın değerlendirme sürecinde, çalışma ile ilgili verilecek kararı olumsuz etkileyebilecek maddi ve/veya manevi herhangi bir destek alınmamıştır.

Çıkar Çatışması

Bu çalışma ile ilgili olarak yazarların ve/veya aile bireylerinin, çıkar çatışması potansiyeli olabilecek bilimsel ve tıbbi komite üyeliği veya üyeleri ile ilişkisi, danışmanlık, bilirkişilik, herhangi bir firmada çalışma durumu, hissedarlık ve benzer durumları yoktur.

Yazar Katkıları

Fikir/Kavram: Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Tasarım:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Denetleme/Danışmanlık:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Veri Toplama ve/veya İşleme:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Analiz ve/veya Yorum:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Kaynak Taraması:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Makalenin Yazımı:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Eleştirel İnceleme:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Kaynaklar ve Fon Sağlama:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin; **Malzemeler:** Ahmet Faruk Ertük, Murat Mert Atapek, İlknur Özcan, Merva Soluk Tekkeşin.

KAYNAKLAR

1. Spreafico R, Sordo L, Bellotto R, Schipano M, Rescaldani A, Parmigiani F, et al. Arterio-venous malformation of the mandible. Case report and review of literature. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2016;36(4):333-6. [[PubMed](#)]
2. Nabeel AK, Jacob JE, Bose T, Sangeetha KP, Sandhya KN, Balan A, et al. Great radiologic imitators: arteriovenous malformation of mandible-a case series. *Contemp Clin Dent.* 2018;9(3):502-8. [[PubMed](#)]
3. Nikolić ŽS, Jelovac DB, Šabani M, Jeremić JV, Boričić I. Intraosseous focal venous malformation of the mandibular body: cone beam computed tomography planning followed by piezoelectric knife resection and free bone graft reconstruction. *Vojnosanit Pregl.* 2017;74(5):483-8. [[Crossref](#)]
4. Mulliken JB, Burrows PE, Fishman SJ. *Mulliken and Young's Vascular Anomalies: Hemangiomas and Malformations.* 2nd ed. Oxford: Oxford University Press; 2013. p.1118. [[Crossref](#)]
5. Mulliken JB, Enjolras O. Congenital hemangiomas and infantile hemangioma: missing links. *J Am Acad Dermatol.* 2004;50(6):875-82. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)]
6. Mulliken JB, Young AE. *Vascular Birthmarks: Hemangiomas and Malformations. Part One: Background; Chapter 2: Classification of Vascular Anomalies.* Philadelphia: Saunders, Oxford University Press; 2013; Issue:2.
7. Enjolras O, Wassef M, Chapot R. *Color Atlas of Vascular Tumors and Vascular Malformations.* 1st ed. New York: Cambridge University Press; 2007. p.299. [[Crossref](#)]
8. Chan C, Iv M, Fischbein N, Dahmouh H. Lobular capillary hemangioma of the mandible: a case report. *Clin Imaging.* 2018;50:246-9. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)]
9. Hamada M, Shimizu H, Takasu A, Nishiyama K, Yura. Piezosurgery for intraosseous venous malformation of the mandible. *Ann Maxillofac Surg.* 2018;8(2):333-6. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)] [[PMC](#)]
10. Mutlu M, Yariş N, Aslan Y, Kul S, Imamoğlu M, Ersöz S, et al. Intraosseous noninvoluting congenital hemangioma of the mandible in a neonate. *Turk J Pediatr.* 2009;51(5):507-9. [[PubMed](#)]
11. Ito Y, Abe A, Adachi M. Venous malformation arising in the pterygomandibular space: a case report. *J Oral Maxillofac Surg Med Pathol.* 2019;31(2):103-7. [[Crossref](#)]
12. Kalsi H, Scannell J. Unusual presentation of an intraosseous hemangioma of the maxilla and displaced canine. *Int J Clin Pediatr Dent.* 2013;6(2):124-6. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)] [[PMC](#)]
13. Kamath JS, Kini R, Sangeetha R, Murukan S, Naik V, Madiyal A, et al. Central hemangioma involving the mandible: a rare condition: case report and review of literature. *TJFMPC.* 2018;12(1):72-6. [[Crossref](#)]
14. Kim DW, Sol IS, Kim MJ, Kim SY, Kim JD, Choi BS, et al. Life-threatening hemorrhage caused by mandibular arteriovenous malformation: a case report. *Journal of the Korean Society of Emergency Medicine.* 2018;29(1):93-9.
15. Patel S, et al. Cavernous hemangioma of mandible: An unusual presentation. *Paripex Indian Journal of Research.* 2017;6 n. pag.
16. Oliveira GG, García-Rozado A, Rey RL. Intraosseous mandibular hemangioma. A case report and review of the literature. *Med Oral Patol Cir Bucal.* 2008;13(8):E496-8. [[PubMed](#)]
17. Eliot CA, Castle JT. Intraosseous hemangioma of the anterior mandible. *Head Neck Pathol.* 2010;4(2):123-5. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)] [[PMC](#)]
18. Kaya B, Işılğan SE, Cerkez C, Otrakçı V, Serel S. Intraosseous cavernous hemangioma: a rare presentation in maxilla. *Eplasty.* 2014;23:14.e35. [[PubMed](#)]
19. Ozdemir R, Alagoz S, Uysal AC, Unlu RE, Ortak T, Sensoz O, et al. Intraosseous hemangioma of the mandible: a case report and review of the literature. *J Craniofac Surg.* 2002;13(1):38-43. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)]
20. Lamberg MA, Tasanen A, Jääskeläinen J. Fatality from central hemangioma of the mandible. *J Oral Surg.* 1979;37(8):578-84. [[PubMed](#)]
21. Dereci O, Acikalın MF, Ay S. Unusual intraosseous capillary hemangioma of the mandible. *Eur J Dent.* 2015;9(3):438-41. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)] [[PMC](#)]
22. Suzuki Y, Ikeda H, Matsumoto K. Neuroradiological features of intraosseous cavernous hemangioma--case report. *Neurol Med Chir (Tokyo).* 2001;41(5):279-82. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)]
23. Yucel E, Akkaya H, Gürkanlar D, Ergun T. Congenital cavernous hemangioma of the skull. *Turk Neurosurg.* 2011;21(4):645-7. [[PubMed](#)]
24. Fábrián Z, Szabó G, Petrovan Z, Horváth KU, Babicsák B, Hüttl K, et al. Intraosseous venous malformation of the zygomatico-orbital complex. Case report and literature review with focus on confusions in vascular lesion terms. *Oral Maxillofac Surg.* 2018;22(2):241-7. [[Crossref](#)] [[PubMed](#)]