

Λειομύωμα γναθιαίου κόλπου-ρινός Αναφορά περίπτωσης

Κασσιανή ΚΑΚΑΒΑ¹, Ανδριανός-Σεραφεΐμ ΤΖΩΡΤΖΗΣ², Συμεών ΤΣΙΝΤΖΟΣ³, Γεώργιος ΤΖΩΡΤΖΗΣ⁴

Γενικό Νοσοκομείο Τρίπολης, Τμήμα Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής (Διευθυντής: Γεώργιος Τζώρτζης)

Leiomyoma of maxillary sinus-nasal cavity A case report

Kassiani KAKAVA, Andrianos-Serafeim TZORTZIS, Simeon TSINTZOS, George TZORTZIS

General Hospital of Tripolis, Greece, Department of Oral and Maxillofacial Surgery (Head: George Tzortzis)

Ενδιαφέρουσα περίπτωση
Case report

ΠΕΡΙΛΗΨΗ: Το λειομύωμα είναι ένας όγκος που προέρχεται από τις λείες μυϊκές ίνες και εντοπίζεται στο γαστρεντερικό, στο ουροποιητικό και πολύ λιγότερο στο ανώτερο αναπνευστικό σύστημα. Το λειομύωμα του γναθιαίου κόλπου-ρινός είναι ένα σπάνιο νεόπλασμα, το οποίο συνήθως εμφανίζεται στους ενήλικες και προσβάλλει περισσότερο τις γυναίκες. Παρουσιάζεται είτε με την μορφή πολύποδα ή μάζας, που μπορεί να καταλαμβάνει τον γναθιαίο κόλπο, την ρινική κοιλότητα ή και τα δυο μαζί. Συνήθως προκαλεί ρινική απόφραξη, επίσταξη, ή και άτυπο προσωπικό πόνο. Η εργασία αφορά περίπτωση λειομύωματος γναθιαίου κόλπου-ρινός, που προσήλθε με αναφερόμενη οδονταλγία, οίδημα στη σύστοιχη παρειά, εξώφθαλμο και μείωση κινητικότητας του σύστοιχου οφθαλμού. Γίνεται αναφορά στην διαγνωστική προσέγγιση και την αντιμετώπιση.

ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ: γναθιαίος κόλπος, ρινική κοιλότητα, λειομύωμα, καλοήθης όγκος

SUMMARY: The leiomyoma is a benign tumor which arises from the smooth muscle fibers, and it is usually located in the gastrointestinal tract and the urinary tract, and a lot less in the upper respiratory tract. The leiomyoma of the maxillary sinus – nasal cavity is a rare neoplasm, which is seen in adults and with a female predominance. It occurs either as a polyp or mass which can occupy the maxillary sinus, the nasal cavity, or both together. It can cause nasal obstruction, epistaxis and even atypical facial pain. We report a case of a leiomyoma of the maxillary sinus – nasal cavity, who presented with reported toothache, edema in the ipsilateral cheek, exophthalmos, and reduced movement of the ipsilateral eye. The diagnostic approach and the treatment of the maxillary sinus – nasal cavity are also discussed in this case report.

KEY WORDS: maxillary sinus, nasal cavity, leiomyoma, benign tumor

¹ Επικουρική Επιμελήτρια Β' ΕΣΥ, ΩΡΛ
² Φοιτητής Ιατρικής Σχολής ΕΚΠΑ
³ Διευθυντής ΕΣΥ, ΩΡΛ
⁴ Διευθυντής ΕΣΥ, ΜSc, ΣΓΠΧ

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Το λειομύωμα αποτελεί καλοήγη όγκο του λείου μυϊκού ιστού, καθώς περιγεγραμμένο, εντοπίζεται στο γαστρεντερικό, στο ουροποιητικό και πολύ λιγότερο στο ανώτερο αναπνευστικό σύστημα, ενώ εμφανίζεται με τη μεγαλύτερη συχνότητα στη μήτρα (Farman και Kay, 1977). Στην κεφαλή και τον τράχηλο, λόγω της σπανιότητας των λείων μυϊκών ινών, εμφανίζεται σε ποσοστό μικρότερο από 1% του συνόλου και από αυτό μόνο 3% εντοπίζεται στη ρινική κοιλότητα και τους παραρρινικούς κόλπους (Fanburg-Smith και συν. 2008). Όταν εντοπίζεται στη ρινική κοιλότητα και τους παραρρινικούς κόλπους εκδηλώνεται συνήθως με ρινική απόφραξη, επίσταξη και προσωπαλγία (Trott και συν. 1994). Η χειρουργική εξαίρεση του νεοπλάσματος οδηγεί σε πλήρη ίαση, ενώ η υποτροπή είναι ιδιαίτερα σπάνια (Gündüz και συν. 2004). Αναφερόμαστε εκτενώς σε συγκεκριμένη περίπτωση, γιατί αφενός τα λειομύωματα της ρινός και των παραρρινικών κόλπων είναι ιδιαίτερα σπάνια νεοπλάσματα και αφετέρου ενώ εκφύονται συχνότερα από τη ρινική κοιλότητα στην περίπτωση μας προερχόταν από τον δεξιό γναθιαίο κόλπο.

ΑΝΑΦΟΡΑ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Γυναίκα 37 ετών παραπέμφθηκε από τον οδοντίατρο της στο τμήμα Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής του Νοσοκομείου μας, λόγω εμμένουσας και έντονης οδονταλγίας στην περιοχή του 14-16. Η ασθενής κατά την κλινική εξέταση ανέφερε έντονο άλγος στην περιοχή της άνω γνάθου δεξιά τους τελευταίους 6 μήνες. Παρουσίαζε επίσης οίδημα στη σύστοιχη παρειά, εξώφθαλμο, περιορισμένη κινητικότητα του οφθαλμικού βολβού και διπλωπία (Εικ. 1). Ανέφερε απόφραξη της σύστοιχης ρινικής θαλάμης. Με τη ρινοσκόπηση εντοπίστηκε πολυποειδής εξεργασία με λεία, μη εύθρυπτη και μη αιμορραγική επιφάνεια που καταλάμβανε την δεξιά ρινική θάλαμη.

Η ασθενής υποβλήθηκε στα πλαίσια διερεύνησης της νόσου αρχικά σε πανοραμική ακτινογραφία, σε CT σπλαγχνικού κρανίου και στη συνέχεια σε MRI. Η πανοραμική ακτινογραφία ανέδειξε διαταραχή της αρχιτεκτονικής του δεξιού γναθιαίου κόλπου, εκτεταμένη θολερότητα, λέπτυνση της φατνιακής ακρολοφίας και οι οπίσθιοι άνω οδόντες να «επιπλέουν» στο σύστοιχο γναθιαίο κόλπο (Εικ. 2). Η CT σπλαγχνικού κρανίου ανέδειξε μία καλά περιχαρακωμένη μάζα διαστάσεων 53x55x53 mm στην περιοχή του δεξιού γναθιαίου κόλπου, η οποία απωθούσε το έδαφος του σύστοιχου οφθαλμικού κόγχου, διέβρωνε πιθανότατα το πρόσθιο, το οπίσθιο τοίχωμα του γναθιαίου κόλπου, καθώς και το πλάγιο ρινικό τοίχωμα και τα ηθμοειδή, ενώ πρόβαλε στο άνω τμήμα του ρινοφάρυγγα (Εικ. 3). Η MRI έδειξε ότι πρόκειται για συμπαγή μάζα με διαφραγμάτια και έντονη σκιαγραφική ενίσχυση μετά τη χορήγηση IV παραμαγνητικής ουσίας (Εικ. 4).

INTRODUCTION

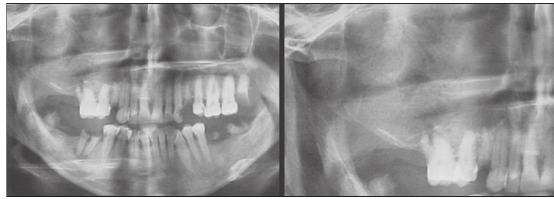
Leiomyomas are well-demarcated benign smooth muscle tumours that can develop in the gastrointestinal, urinary and, less frequently, upper respiratory tracts; its most common site is the uterus (Farman and Kay, 1977). The head and neck region is affected in less than 1% of all cases, due to the rareness of smooth muscle fibres in this area; of these very few cases, just 3% involve the nasal cavity and paranasal sinuses (Fanburg-Smith et al. 2008). When involving the nasal cavity and paranasal sinuses, leiomyoma usually manifests itself as nasal obstruction, epistaxis and prosopalgia (Trott et al. 1994). Surgical resection of the neoplasm can result in complete treatment, with very rare relapses (Gündüz et al. 2004). Leiomyomas of the nose and paranasal sinuses are very rare neoplasms that usually arise from the nasal cavity. The case presented here involves a rare leiomyoma that originated in the right maxillary sinus.

CASE REPORT

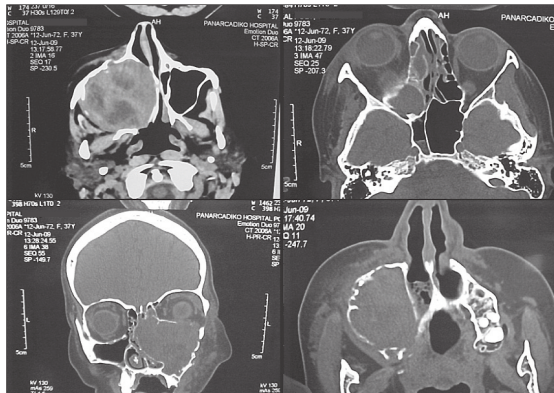
A 37-year-old woman was referred by her dentist to the Oral and Maxillofacial Surgery Department of our Hospital, due to persistent severe toothache in the area of the teeth No 14-16. During her clinical examination, she reported severe pain in the right maxilla, which had started 6 months earlier. Other symptoms included swelling in the ipsilateral cheek, exophthalmos, reduced eyeball movement and diplopia (Fig. 1). She also reported ipsilateral nasal cavity obstruction. Rhinoscopy revealed a polypoid lesion with a smooth, non-friable, non-bleeding surface that occupied the right nasal cavity. In order to further assess her condition, we performed panoramic x-ray, sinus CT and later also MRI. The panoramic x-ray revealed a structural disorder of the right maxillary sinus, extensive radiopacity and thinning of the alveolar ridge, and showed that the posterior upper teeth were "floating" in the ipsilateral maxillary sinus (Fig. 2). The sinus CT revealed a well-demarcated mass measuring



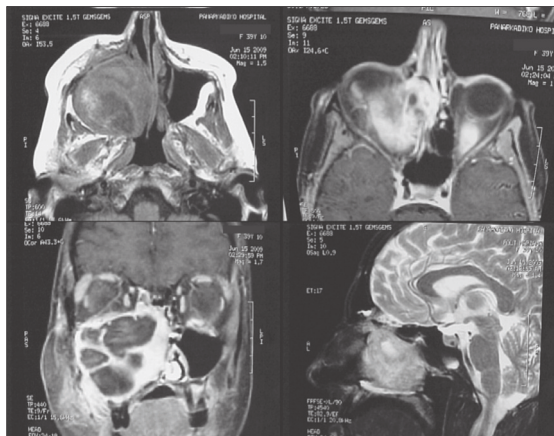
Εικ. 1: Κλινική εικόνα της ασθενούς.
Fig. 1: Clinical view of the patient.



Εικ. 2: Πανοραμική ακτινογραφία.
Fig. 2: Panoramic x-ray.

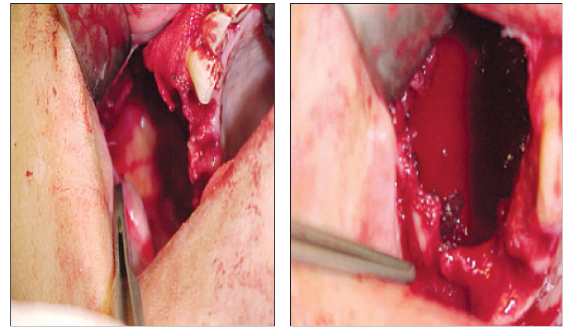


Εικ. 3: CT σπλαχνικού κρανίου.
Fig. 3: CT scan of viscerocranium.

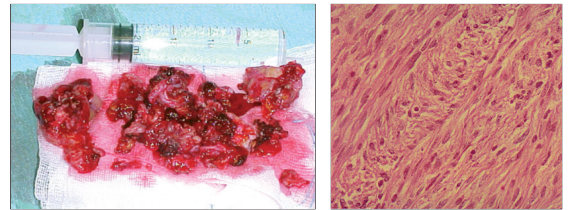


Εικ. 4: MRI σπλαχνικού κρανίου.
Fig. 4: MRI scan of viscerocranium.

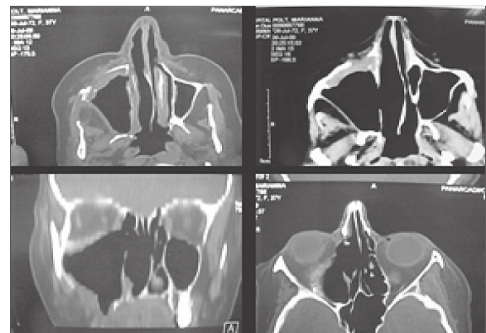
Στα πλαίσια της διαγνωστικής προσέγγισης, αρχικά υπό τοπική αναισθησία έγινε βιοψία ιστού από την σύστοιχη ουλοπαρειακή αύλακα, με το ιστολογικό πόρισμα να αποκλείει την κακοήθεια χωρίς όμως να θέτει οριστική διάγνωση. Για την αντιμετώπιση του καλοήθους αυτού όγκου επιλέχθηκε τέτοια προσπέλαση, ώστε να ήταν εφικτή η πλήρης χειρουργική εξαίρεση λαμβάνοντας υπ' όψιν την εντόπισή του, την φύση του και την εμπειρία του χειρουργού. Έτσι υπό γενική αναισθησία, με Caldwell-Luc προσπέλαση, εξαιρέθηκε τμηματικά (piecemeal fashion) ο όγκος, ο οποίος δεν παρουσίαζε κάψα αλλά ήταν καλά περιγεγραμμένος και εύθρυπτος, από το έδαφος του οφθαλμικού κόγχου, τα τοιχώματα του γναθιαίου κόλπου, το πλάγιο ρινικό τοίχωμα, τα πρόσθια ηθμοειδή και τον



Εικ. 5: Χειρουργική εξαίρεση του νεοπλάσματος με Caldwell-Luc προσπέλαση.
Fig. 5: Surgical removal of the neoplasm using a Caldwell-Luc approach.

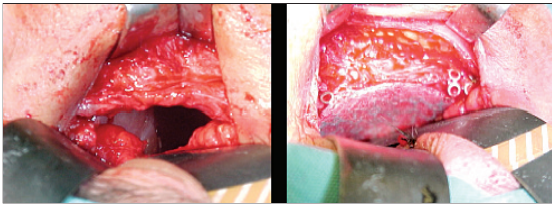


Εικ. 6: Μακροσκοπική και μικροσκοπική εικόνα χειρουργικού και ιστολογικού παρασκευάσματος. Στη μικροσκοπική εικόνα του παρασκευάσματος διακρίνονται δέσμες διαπλεκόμενων λείων μυικών ινών.
Fig. 6: Macroscopic and microscopic view of the surgical and histological specimen. In the microscopic view of the specimen, bundles of interwoven smooth muscle fibres can be seen.



Εικ. 7: Επανάληψη CT σπλαχνικού κρανίου 6 εβδομάδες μετά.
Fig. 7: Repetition of the viscerocranium CT scan 6 weeks later.

53x55x53mm in the area of the left maxillary sinus, which pushed the ipsilateral orbital floor and potentially also eroded the anterior and posterior maxillary sinus walls, as well as the lateral nasal wall and ethmoids, whilst also protruding into the upper part of the nasopharynx (Fig. 3). The MRI showed that it was a solid mass with septa and high contrast enhancement after the IV administration of paramagnetic substance (Fig. 4). For diagnostic purposes, tissue biopsy was obtained, under local anaesthesia, from the ipsilateral gingivobuccal sulcus. The histological findings indicated non-malignancy, but did not help establish a final diagnosis. The surgical approach that was selected ensured that this benign tumour could be removed completely, taking into account its location



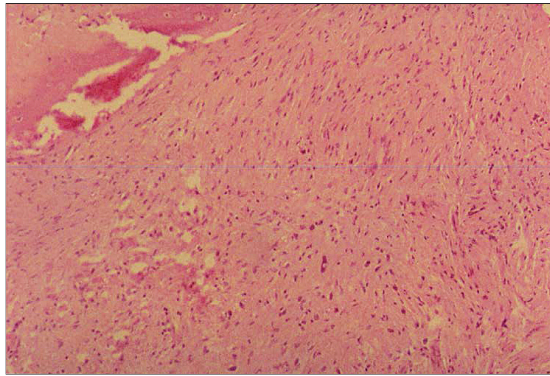
Εικ. 8: Αποκατάσταση του εδάφους του οφθαλμικού κόγχου με Porex®.

Fig. 8: Reconstruction of the orbital floor with the use of Porex®.

ρινοφάρυγγα σε μακροσκοπικά υγιή όρια και έγιναν και εξαγωγές των οπίσθιων άνω οδόντων (Εικ. 5). Η ιστολογική εξέταση του παρασκευάσματος ανέδειξε ότι επρόκειτο για συμπαγές λειομύωμα (Εικ. 6). Στο νοσοκομείο μας δεν πραγματοποιούνται ανοσοϊστοχημικές χρώσεις και για το συγκεκριμένο περιστατικό δεν θεωρήθηκε αναγκαία από τους παθολογοανατόμους περαιτέρω διερεύνηση με πιο εξειδικευμένες τεχνικές.

Έξι εβδομάδες μετά, στα πλαίσια επανεξέτασης με CT σπλαγχνικού κρανίου, αναδείχθηκε η παρουσία υπολειμματικής νόσου πλησίον του υποκόγχιου χείλους (Εικ. 7). Αποφασίστηκε επανεπέμβαση με υποβλεφαριδική προσπέλαση, κατά την οποία διαπιστώθηκε διεγχειρητικά διάβρωση του εδάφους του οφθαλμικού κόγχου και τμήματος του υποκόγχιου χείλους. Πραγματοποιήθηκε ταυτόχρονα αποκατάσταση του εδάφους του οφθαλμικού κόγχου με Porex® (Εικ. 8) και έγινε και σύγκλιση της στοματοκολπικής επικοινωνίας, που είχε προκληθεί λόγω διάσπασης του κρημνού από το προηγούμενο χειρουργείο, με τη λιπώδη σφαίρα της παρειάς. Η ιστολογική εξέταση στο δεύτερο χειρουργείο έδειξε ότι πρόκειται για συμπαγές λειομύωμα το οποίο διαβρώνει το παρακείμενο οστόν (Εικ. 9). Η ασθενής 3 μήνες μετά το χειρουργείο, μαζί με την ακτινογραφία κόλπων προσώπου (Εικ. 10).

Η ασθενής παρέμεινε ασυμπτωματική και ελεύθερη νόσου για εννέα έτη. Προσήλθε στο Τμήμα μας και παρουσίαζε στη χειρουργηθείσα περιοχή έντονη ερυθρότητα, υπεραιμία και πυώδη προδιαφραγματική έκκριση κατά την πίεση στο υποκόγχιο χείλος, καθώς και περιορισμό της κινητικότητας του οφθαλμού. Υπεβλήθη εκ νέου σε απεικόνιση με CT scan στο οποίο αναφέρεται ανάπτυξη μάζας εκ μαλακού ιστού 2,8x1,5 εκατοστά στο πρόσθιο τοίχωμα του δεξιού γναθιαίου κόλπου και στο έδαφος του δεξιού οφθαλμικού κόγχου. Στα πλαίσια της διαφορικής διάγνωσης σε συνδυασμό με το ιστορικό της ασθενούς, το εύρημα θα μπορούσε να αποδοθεί σε υποτροπή της νόσου ή σε φλεγμονώδη διήθηση (Εικ. 11). Αποφασίστηκε, με προσπέλαση Weber-Ferguson, αφαίρεση του αλλοπλαστικού υλικού και ταυτόχρονα ευρύτατος χειρουργικός καθαρισμός της περιοχής (Εικ. 12α, β, γ, δ). Η αποκατάσταση του ελλείμματος του εδάφους του οφθαλμικού κόγχου, του προσθίου τοιχώματος του γναθιαίου κόλπου και του πλάγιου ρινικού τοι-

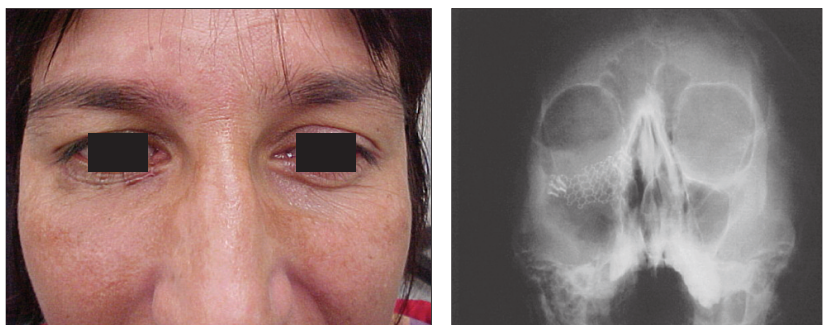


Εικ. 9: Ιστολογική εικόνα συμπαγούς λειομύωματος που διαβρώνει το παρακείμενο οστόν.

Fig. 9: Histological view of a solid leiomyoma that has eroded the adjacent bone.

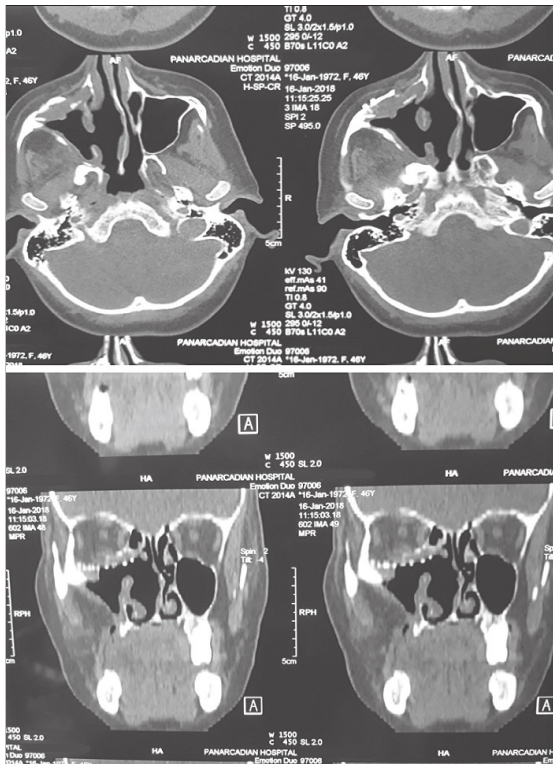
and nature, as well as the surgeon's experience. Under general anaesthesia, a Caldwell-Luc incision was used to dissect the tumour (which did not have capsule and was well-demarcated and friable) in a piecemeal fashion from the orbital floor, maxillary sinus walls, lateral nasal wall, anterior ethmoids and nasopharynx, within macroscopically healthy margins, and the posterior maxillary teeth were removed (Fig. 5). The histological examination of the specimen revealed that it was a solid leiomyoma (Fig. 6). Our hospital does not carry out immunohistochemical staining and, in this particular case, it was not deemed necessary by the pathologists to conduct further examinations using more specialised techniques.

Six weeks later, a follow-up sinus CT scan revealed the presence of residual tumour close to the infraorbital foramen (Fig. 7). It was decided to access the area again through a subciliary incision. Intraoperatively, it was discovered that the orbital floor and part of the infraorbital foramen had been eroded. We reconstructed the orbital floor using Porex® (Fig. 8), and closed the oroantral fistula, that had been created due to the dehiscence of the flap from the previous operation, with the buccal fat pad. The histological examination from the second operation showed that the tumour was a solid leiomyoma which had eroded the adjacent bone (Fig. 9). Fig. 10 shows the patient 3 months after the operation together with her sinus x-ray.



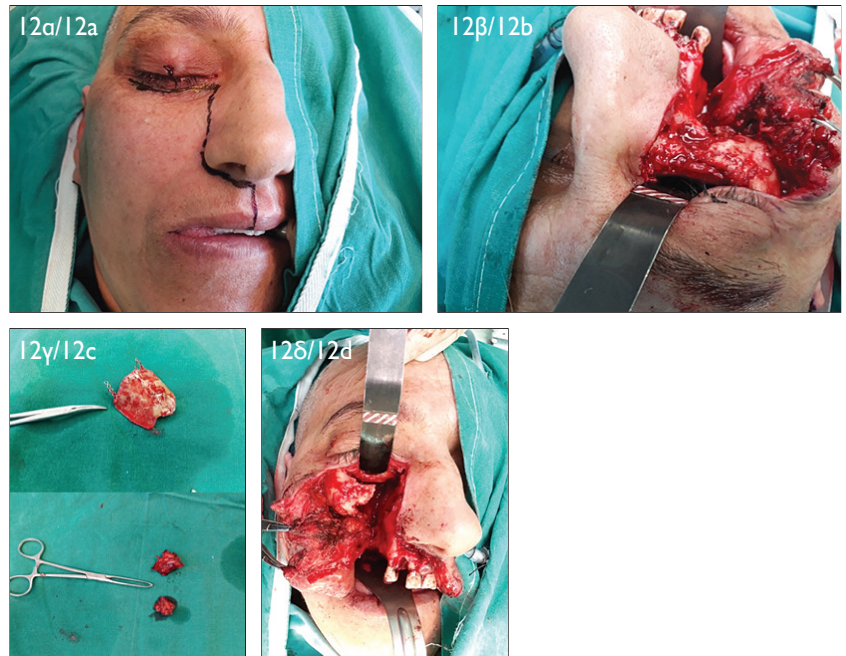
Εικ. 10: Μετεγχειρητική εικόνα και ακτινογραφία κόλπων-προσώπου της ασθενούς.

Fig. 10: Post-operative view and sinus x-ray of the patient.



Εικ. 11: CT σπλαγχνικού κρανίου εννέα χρόνια μετά.

Fig. 11: CT scan of the viscerocranium nine years later.



Εικ. 12: α) Η προσπέλαση κατά Weber- Ferguson, β) Προσπέλαση στο έδαφος του οφθαλμικού κόγχου και στη φλεγμάνουσα περιοχή, γ) αφαίρεση του αλλοπλαστικού υλικού και παθολογικού ιστού, δ) η ασθενής υποβλήθηκε σε ευρύτατο χειρουργικό καθαρισμό.

Fig. 12: a) Weber-Ferguson approach; b) Accessing the orbital floor and the inflamed site; c) removal of the alloplastic material and affected tissue; d) the patient underwent extensive surgical debridement.

χώματος έγινε με κρημό κροταφίτη μύος, ο οποίος ελήφθη με ημιστεφανιαία προσπέλαση (Εικ. 13α, β, γ, δ). Η ιστολογική εξέταση έδειξε ότι επρόκειτο για χρόνια φλεγμονή της περιοχής. Η μετεχειρητική πορεία της ασθενούς ήταν ομαλή και βλέπουμε άμεσα μετεχειρητικά την εμφάνιση της ασθενούς και έξι μήνες μετά το τελευταίο χειρουργείο (Εικ. 14).

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

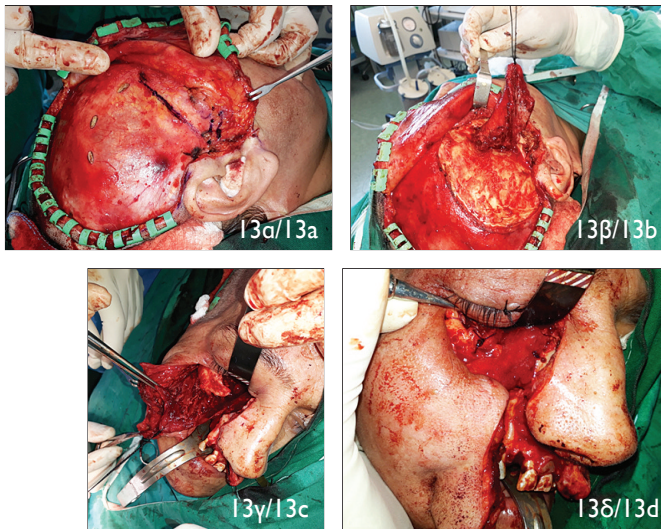
Η περιοχή της κεφαλής και τραχήλου περιλαμβάνει σημαντικές ανατομικές δομές και όργανα και αποτελεί μια από τις περιπλοκότερες ανατομικές χώρες του ανθρώπινου σώματος. Η πλειονότητα των όγκων της περιοχής είναι επιθηλιακής προέλευσης και σε πολύ μικρότερη συχνότητα μεσεγχυματογενούς. Οι όγκοι από τις λείες μυϊκές ίνες είναι λιγότερο από το 3,5% των μεσεγχυματογενών όγκων που εμφανίζονται στην περιοχή της κεφαλής και τραχήλου. Στη διεθνή βιβλιογραφία υπάρχει αναφορά σε μεμονωμένες περιπτώσεις όγκων από λείες μυϊκές ίνες, ενώ πολύ λίγα άρθρα αναφέρουν περισσότερα περιστατικά από αντίστοιχους όγκους, γεγονός που υποδηλώνει και την σπανιότητά τους (Huang και Antonescu, 2003, Gündüz και συν. 2004).

Τα λειομύματα παραρρινίων κόλπων-ρινός αποτελούν καλοήγη νεοπλασμάτα, που σπάνια παρατηρούνται στην κεφαλή και στον τράχηλο, λόγω της απουσίας λείων μυϊκών ινών σε αυτές τις δομές (Veeresh και συν. 2013).

The patient remained asymptomatic and disease-free for 9 years. She presented again at our Department with the following symptoms in the area that had previously been operated on: severe redness, hyperaemia and preseptal pyorrhea when applying pressure to the infraorbital foramen, as well as reduced eye movement. The patient had another round of CT scanning, which revealed the development of a soft tissue mass measuring 2.8x1.5cm in the anterior wall of the right maxillary sinus and the right orbital floor. In terms of differential diagnosis, in the context of the patient's medical history, this finding could be interpreted as disease relapse or inflammatory infiltration (Fig. 11). We decided to use a Weber-Ferguson incision to remove the alloplastic material and also perform a thorough debridement of the area (Fig. 12a, b, c, d). The resulting defect in the orbital floor, the anterior wall of the maxillary sinus, and the lateral nasal wall was reconstructed with the use of a temporalis muscle flap that was obtained through a hemicoronal incision (Fig. 13a, b, c, d). The histological examination showed that it was a chronic infection of the area. The patient's postoperative course was uneventful. Fig. 14 is a picture of her, immediately postoperatively and six months after her most recent operation.

DISCUSSION

The head and neck region includes a number of important anatomical structures and organs, and is one of the most



Εικ. 13: α) Λήψη κροταφίτη μύος με ημιστεφανιαία προσπέλαση, β) Η παρασκευή του κροταφίτη μύος γ) Η κινητοποίηση και η μεταφορά του ενδοστοματικά κάτω από το ζυγωματικό τόξο δ) Καθήλωση του κροταφίτη μύος με ραφές στο υποκόγχιο χείλος και το πλάγιο ρινικό τοίχωμα για την αποκατάσταση του ελλείμματος.

Fig. 13: a) The temporalis muscle was raised using a hemicoronal incision; b) Preparation of the temporalis muscle; c) Mobilisation and intraoral transfer below the zygomatic arch; d) Immobilisation and suturing of the temporalis muscle on the infraorbital rim and lateral nasal wall, in order to reconstruct the defect.

Εμφανίζονται κυρίως σε ενήλικες μέσης ηλικίας, καθώς η πλειοψηφία των ασθενών διανύει την 4η-5η δεκαετία ζωής και σε αναλογία γυναικών/ανδρών=2/1. Η αιτιολογία τους παραμένει αδιευκρίνιστη, αλλά η ανάπτυξή τους φαίνεται να είναι ορμονοεξαρτώμενη λόγω της επικράτησής τους στο γυναικείο φύλο και της επίτασης των συμπτωμάτων τους κατά την κύηση και κατά τον εμμηνορρυσιακό κύκλο (Marioni και συν. 2002, Campelo και συν. 2008).

Στους παραρρίνιους κόλπους-ρινική κοιλότητα προέρχονται είτε από το μη διαφοροποιημένο μεσέγχυμα, είτε από τις λείες μυϊκές ίνες των τοιχωμάτων των αιμοφόρων αγγείων ή τον συνδυασμό αυτών. Αναπτύσσονται με βραδύ ρυθμό, εντοπίζονται κυρίως δεξιά και οι θέσεις συχνότερης εντόπισής τους είναι η κάτω ρινική κόγχη, το ρινικό διάφραγμα και ο πρόδομος της ρινός (Duhig και Ayer, 1959, Vafiadis και συν. 2008). Οι κύριες κλινικές εκδηλώσεις τους είναι: η ρινική απόφραξη (56,25%), η επίσταξη (56,25%), η προσωπαλγία (25%) και η κεφαλαλγία (25%). Πολλές φορές μπορεί να υπάρξει άτυπος προσωπικός πόνος, που μπορεί να έχει διαγνωσθεί ως νευραλγία τριδύμου (Lijovetzky και συν. 1985).

Ιστολογικά οι όγκοι από λείες μυϊκές ίνες κατατάσσονται στο λειομυοσάρκωμα (low grade-high grade), στους όγκους αβέβαιης κακοήθειας και στο λειομύωμα. Τα χαρακτηριστικά που λαμβάνονται υπόψη είναι η εξέλκωση του επιθηλίου, η κυτταροβρίθεια, η κυτταρική ατυπία, μιτωτικές κινήσεις και η διήθηση του παρακείμενου οστού (Huang και Antonescu, 2003).

Τα λειομύματα ταξινομούνται σε τρεις κατηγορίες: τα μη αγγειακής προέλευσης λειομύματα, (συμπαγή λειομύματα), τα αγγειακά λειομύματα (αγγειομύματα)



Εικ. 14: Άμεσα μετεγχειρητικά η εικόνα της ασθενούς και έξι μήνες μετά το τελευταίο χειρουργείο.

Fig. 14: View of the patient immediately postoperatively and 6 months after her last operation.

complex anatomical areas of the human body. The majority of tumours in this area are of epithelial origin and much less frequently of mesenchymal origin. Smooth muscle tumours account for less than 3.5% of mesenchymal tumours in the head and neck region. Only individual cases of smooth muscle tumours are reported in the international literature, and there are very few articles on multiple cases of these tumours, which hints to their uncommonness (Huang and Antonescu, 2003, Gündüz et al. 2004). Leiomyomas of the paranasal sinuses-nasal cavity are benign neoplasms that rarely occur in the head and neck region, due to the absence of smooth muscle fibres in these structures (Veeresh et al. 2013). They occur mainly in middle-aged adults, with the majority of patients being in the 4th or 5th decade of their life, and have a female-to-male ratio of 2:1. Their aetiology remains unclear, however their development seems to be hormone-dependent as they are more common in women, and the symptoms seem to become worse during pregnancy and throughout the menstrual cycle (Marioni et al. 2002, Campelo et al. 2008).

In the paranasal sinuses-nasal cavity, leiomyomas originate from non-differentiated mesenchyme or smooth muscle fibres of the blood vessel walls, or a combination of these two. They develop at a slow rate, tend to be located on the right side, and affect mainly the lower nasal cavity, nasal septum and nasal vestibule (Duhig and Ayer, 1959, Vafiadis et al. 2008). Their clinical manifestations include: nasal obstruction (56.25%), epistaxis (56.25%), prosopalgia (25%) and headache (25%). In many cases, there is atypical facial pain, which may have been diagnosed as trigeminal neuralgia (Lijovetzky et al. 1985).

Histologically, smooth muscle tumours are classified as

και τα επιθηλιοειδή λειομύωματα (άτυπα λειομύωματα και λειομυοβλαστώματα) (Neville και συν. 1995). Τα λειομύωματα που παρατηρούνται συχνότερα στην κεφαλή είναι αγγειακής προέλευσης. Η διαφορική διάγνωση περιλαμβάνει τα αιμαγγειώματα, τα αγγειοϊνώματα, τα αιμαγγειοπερικυττώματα, τα μυοϊνώματα και τα λειομυοσαρκώματα. Η ανοσοϊστοχημική χρώση με την μυϊκή ειδική ακτίνη, την δεσμίνη, την μυσσοφαιρίνη, την πρωτεΐνη S-100 και την βιμεντίνη συμβάλλει σημαντικά στη διαφορική διάγνωση (Mills και συν. 2000, Tseng και συν. 2014). Η αξονική (CT) και η μαγνητική (MRI) τομογραφία μπορούν να προσφέρουν σημαντικές πληροφορίες σχετικά με την έκταση της βλάβης, την ύπαρξη οστικής διάβρωσης, αλλά και τη διαφορική διάγνωση του νεοπλάσματος από άλλες παθολογικές καταστάσεις (Yang και συν. 2009). Η πλήρης χειρουργική εξαίρεση είτε με ενδοσκοπική είτε με ανοικτή προσπέλαση θεωρείται θεραπεία εκλογής. Σε περιστατικά με αποκλειστική ενδορρινική εντόπιση, η ενδοσκοπική χειρουργική φαίνεται να οδηγεί σε ίαση, αλλά σε νεοπλάσματα με μεγαλύτερη έκταση έχει χρησιμοποιηθεί η Caldwell-Luc προσπέλαση, η πλάγια ρινοτομία, η εξωτερική ηθμοειδεκτομή καθώς και άλλες ευρύτερες προσεγγίσεις (Nicolai και συν. 1996).

Στη δική μας περίπτωση, τα ιστολογικά χαρακτηριστικά του όγκου ήταν χωρίς πυρηνοκινήσεις και χωρίς μτώσεις. Στο παρασκευάσμα του δεύτερου χειρουργείου ο όγκος παρουσίαζε και διάβρωση του οστού και παρόλα αυτά τελικά κατατάχθηκε στο λειομύωμα και όχι στο λειομύωμα αβέβαιης κακοήθειας. Η ιστολογική ταξινόμηση των όγκων από λείες μυϊκές ίνες παίζει σημαντικό ρόλο στη συμπεριφορά και στη συνολική θεραπευτική αντιμετώπισή τους. Στην περίπτωσή μας έγινε αφαίρεση του όγκου με δυο χειρουργικές επεμβάσεις, λόγω δε του ότι οριακά δεν ταξινομήθηκε σε όγκο αβέβαιης κακοήθειας, επανεξεταζόταν τακτικά για πιθανή υποτροπή. Εννέα χρόνια μετά η ασθενής υποβλήθηκε σε χειρουργική επέμβαση για την αφαίρεση του επιμολυσμένου υλικού αποκατάστασης από το έδαφος του οφθαλμικού κόγχου. Η πρόγνωση του λειομύωματος είναι καλή και δεν αναφέρεται στη διεθνή βιβλιογραφία περιστατικό κακοήθους εξάλλαγής, ενώ οι υποτροπές αφορούν περιπτώσεις ατελούς εξαίρεσης του νεοπλάσματος (Fanburg-Smith και Thompson 2005).

ΣΥΜΠΕΡΑΣΜΑΤΑ

Το λειομύωμα του γναθιαίου κόλπου-ρινός, είναι ένα σπάνιο καλόηθες νεόπλασμα, το οποίο συνήθως εμφανίζεται στους ενήλικες και προσβάλλει περισσότερο τις γυναίκες. Συνήθως προκαλεί ρινική απόφραξη, επίσταξη ή και άτυπο προσωπικό πόνο. Υπάρχει ένας σχετικά μικρός αριθμός αναφορών στη διεθνή βιβλιογραφία. Τα ιστολογικά χαρακτηριστικά του όγκου παίζουν σημαντικό ρόλο για τη συμπεριφορά του και για την θεραπευτική του αντιμετώπιση. Η χειρουργική του εξαίρεση οδηγεί σε πλήρη ίαση, ενώ η υποτροπή είναι ιδιαίτερα σπάνια.

leiomyosarcomas (low grade-high grade), tumours of uncertain malignant potential and leiomyomas. The features that are taken into account are epithelial ulceration, cellularity, cellular atypia, mitotic movements and infiltration of the adjacent bone (Huang and Antonescu, 2003).

Leiomyomas can be classified as follows: leiomyomas of non-vascular origin (solid leiomyomas), vascular leiomyomas (angiomyomas) and epithelial leiomyomas (atypical leiomyomas and leiomyoblastomas) (Neville et al. 1995). Leiomyomas in the head area are usually of vascular origin. Differential diagnosis includes haemangiomas, angiofibromas, haemangiopericytomas, myofibromas and leiomyosarcomas. Immunohistochemical staining with muscle specific actin, desmin, myoglobin, S-100 protein, and vimentin can contribute significantly towards differential diagnosis (Mills et al. 2000, Tseng et al. 2014).

CT and MRI scans can provide significant information on the extent of the lesion, the presence of bone erosion, and the differential diagnosis of the neoplasm from other pathological conditions (Yang et al. 2009). The treatment of choice is complete surgical resection by endoscopic or open surgery. Endoscopic surgery appears to result in complete treatment when the lesion is located at just an intranasal site; in more extensive neoplasms, the procedures that have been used include Caldwell-Luc approach, lateral rhinotomy, external ethmoidectomy, as well as other more extensive approaches (Nicolai et al. 1996).

In the case of our patient, the histological features of the tumour did not reveal any nucleokinesis or mitosis. In the specimen from the second operation, the tumour displayed bone erosion, however it was still classified as a leiomyoma and not a leiomyoma of uncertain malignant potential. Their histological classification as smooth muscle tumours plays an important part in their behaviour and overall treatment. In the case of our patient, two operations were performed to remove the tumour. Because its non-classification as a leiomyoma of uncertain malignant potential was marginal, the patient was re-examined on a regular basis. Nine years later, the patient underwent another operation, for the removal of infected reconstruction material from the orbital floor. Leiomyoma prognosis is very good, and there are no reports of malignant transformations in the international literature; any relapses involve cases of incomplete neoplasm removal (Fanburg-Smith and Thompson 2005).

CONCLUSIONS

Leiomyoma of the maxillary sinus-nasal cavity is a rare benign neoplasm that usually develop in adults, predominantly women. It usually causes nasal obstruction, epistaxis and atypical prosopalgia. There is a relatively small number of reports in the international literature. The histological features of this tumour play an important role in its behaviour and overall treatment. Its surgical removal leads to complete treatment and relapses are very rare.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ/REFERENCES

- Campelo VE, Neves MC, Nakanishi M, Voegels RL: Nasal cavity vascular leiomyoma: case report and literature review. *Braz J Otorhinolaryngol* 74:147–50, 2008.
- Duhig JT, Ayer JP: Vascular leiomyoma: a study of sixty-one cases. *Arch Pathol* 68:424–430, 1959.
- Fanburg-Smith JC, Lasota J, Auerbach A, Foss RD, Laskin WB, Murphey MD: Tumors and Tumor-Like Lesions of the Soft Tissues, In Barnes L.: *Surgical pathology of the head and neck*, vol2, 3rd edition, informa healthcare, pp. 802-806.
- Fanburg-Smith JC, Thompson LDR: Tumors of the nasal cavity and paranasal sinuses, In: Barnes, Eveson, Reichart, Sidransky: *Pathology and Genetics Head and Neck Tumors* IARC Press, 2005, pp 46.
- Farman AG, Kay S: Oral leiomyosarcoma. Report of a case and review of the literature pertaining to smooth-muscle tumors of the oral cavity. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radio Endod* 43:402-409, 1977.
- Gündüz K, Günalp I, Erden E, Ereku S: Orbital Leiomyoma: Report of a Case and Review of the Literature. *Surv Ophthalmol* 49(2):237-42, 2004.
- Huang HY, Antonescu CR: Sinonasal Smooth Muscle Cell Tumors A Clinicopathologic and Immunohistochemical Analysis of 12 Cases With Emphasis on the Low- Grade End of the Spectrum. *Arch Pathol Lab Med* 127:297-304, 2003.
- Lijovetzky G, Zaarura S, Gay I: Leiomyoma of the nasal cavity: report of a case. *J Laryngol Otol* 99:197-200, 1985.
- Marioni G, Marchese-Ragona R, Fernandez S, Bruzon J, Marino F, Staffieri A: Progesterone receptor expression in angioleiomyoma of the nasal cavity. *Acta Otolaryngol* 122:408–12, 2002.
- Mills SE, Gaffrey MJ, Fierson HF: *Tumors of Upper Aerodigestive Tract*. Washington, DC: Armed Forces Institute of Pathology; 2000:251-258. Atlas of Tumor Pathology: 3rd series, fascicle 26.
- Neville BW, Damm Dd, Allen CM, Bouquot JE: *Leiomyoma*. In *Oral and Maxillofacial Pathology*. WB Saunders Company; 1995, pp397-399.
- Nicolai P, Radaelli de Zinis LO, Facchetti F, Maroldi R, Antonelli AR: Craniofacial resection for vascular leiomyoma of the nasal cavity. *Am J Otolaryngol* 17: 240–4, 1996.
- Trott MS, Gewirtz A, Wood BG, Sebek BA: Sinonasal leiomyomas. *Otolaryngol Head Neck Surg* 111: 660-664, 1994.
- Tseng PY, Lai YS, Chen MK, Shen KH: Progesterone receptor expression in sinonasal leiomyoma: a case report and review of the literature. *Int J Clin Exp Pathol* 7(3): 1224-8, 2014.
- Vafiadis M, Kantas I, Panopoulou M, Sivridis E, Exarchakos G : Vascular leiomyoma of the nasal vestibule. Case report and literature review. *B-ENT* 4: 105–10, 2008.
- Veeresh M, Sudhakara M, Girish G, Naik C: Leiomyoma: A rare tumor in the head and neck and oral cavity: Report of 3 cases with review. *J Oral Maxillofac Pathol* 17(2): 281–287, 2013.
- Yang BT, Wang ZC, Xian JF, Hao DP, Chen QH: Leiomyoma of the sinonasal cavity: CT and MRI findings. *Clin Radiol* 64:1203–9, 2009.

Διεύθυνση επικοινωνίας:

Γεώργιος Τζώρτζης

Τέρμα Ερυθρού Σταυρού,

22100, Τρίπολη, Ελλάδα

Τηλ.: 6944 393986

e-mail: tzortzisgnatho@gmail.com

Address:

George Tzortzis

Terma Erythrou Stavrou,

22100, Tripoli, Greece

Tel.: 0030 6944 393986

e-mail: tzortzisgnatho@gmail.com