



Hemangiolympangioma ที่พื้นปาก: รายงานผู้ป่วย 1 รายและการทบทวนวรรณกรรม

นรินทร์ หุ่นฉายศรี

ภาควิชาจักษุ โสต คอ นาสิก ลาริงซ์วิทยา

คณะแพทยศาสตร์ มหาวิทยาลัยศรีนครินทรวิโรฒ

บทคัดย่อ

Hemangiolympangioma จัดเป็นรูปแบบหนึ่งของ lymphangioma ที่มีการเปลี่ยนแปลงไปจากปกติ โดยมี ส่วนประกอบทั้งหลอดเลือดและหลอดน้ำเหลืองที่ผิดปกติ แม้ว่าพบได้น้อยมากแต่ก็มีรายงานการพบจากหลายๆ ตำแหน่ง ของร่างกาย รายงานนี้นำเสนอผู้ป่วยหญิงอายุ 41 ปี ที่มีก้อนที่พื้นปากด้านขวามานาน 1 ปี ตรวจ MRI พบว่า อาจจะเป็น hemangioma ผู้ป่วยได้รับการผ่าตัดเอาก้อนออก ผลชิ้นเนื้อประกอบด้วยหลอดเลือดและหลอดน้ำเหลืองที่ขยายตัวและ คดเคี้ยวไปมาจำนวนมากแทรกอยู่ในกล้ามเนื้อ ผู้ป่วยได้รับการวินิจฉัยว่าเป็น hemangiolympangioma

คำสำคัญ: Hemangiolympangioma, Lymphangioma, Hemangioma

ผู้พิมพ์ประสานงาน:

นรินทร์ หุ่นฉายศรี

ภาควิชาจักษุ โสต คอ นาสิก ลาริงซ์วิทยา

คณะแพทยศาสตร์ มหาวิทยาลัยศรีนครินทรวิโรฒ

62 หมู่ 7 อําเภอองครักษ์ จังหวัดนครนายก 26120

อีเมลล์: niranh@swu.ac.th

Hemangiolympangioma of the floor of mouth: a case report and literature review

Niran Hunchaisri

*Department of Ophthalmology & Oto-Rhino-Laryngology,
Faculty of Medicine, Srinakharinwirot University*

Abstract

Hemangiolympangiomas are considered as a variant of lymphangiomas with malformations of both blood and lymphatic vessels. Although hemangiolympangiomas are rarely found, many cases have been reported from various anatomical sites. Herein, a 41-year-old woman with a chief complaint of right floor of mouth swelling for 1 year was presented. A result from Magnetic Resonance Imaging (MRI) suggested that she probably had hemangioma. Histologic examination revealed multiple tortuous and dilated vascular and lymphatic channels embedded in the fibromuscular stroma. A diagnosis of intramuscular hemangiolympangioma was given.

Keywords: Hemangiolympangioma, Lymphangioma, Hemangioma

Corresponding author:

Niran Hunchaisri

Department of Ophthalmology & Oto-Rhino-Laryngology, Faculty of Medicine, Srinakharinwirot University

62 Moo 7 Ongkharak District, Nakhon-Nayok Province, 26120

E-mail: niranh@swu.ac.th

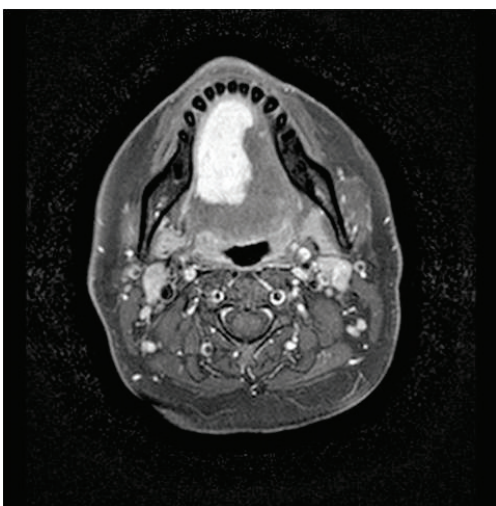
■ บทนำ

โรค hemangioma และ lymphangioma เป็นการเจริญผิดปกติของหลอดเลือดและหลอดน้ำเหลืองตามลำดับ ส่วนโรค hemangiolymphangioma จะประกอบไปด้วยทั้งหลอดเลือดและหลอดน้ำเหลืองที่ผิดปกติ¹ hemangiolymphangioma จัดเป็นรูปแบบหนึ่งของ lymphangioma ที่พบได้น้อยมาก โดยส่วนใหญ่พบที่รักแร้ ซ่องท้อง ทางเดินอาหาร และบริเวณแขนขา^{2,3} นอกจากนี้ ยังมีรายงานพบที่อذنทะ⁴ และที่ลิ้น⁵ อีกด้วย แม้ว่าลักษณะทางพยาธิวิทยาจะเป็นเนื้องอกธรรมดาไม่ใช่มะเร็ง แต่มีแนวโน้มในการแทรกซึมเข้าสู่เนื้อเยื่อที่อยู่โดยรอบและมีโอกาสกลับมาเป็นใหม่สูง^{6,7} ซึ่งลักษณะเหล่านี้ทำให้ hemangiolymphangioma มีความแตกต่างจาก lymphangioma หรือ hemangioma ธรรมดา รายงานนี้นำเสนอผู้ป่วย hemangiolymphangioma ที่พื้นปากที่ลุกลามเข้ากล้ามเนื้อพร้อมกับการทบทวนข้อมูลวิชาการที่เกี่ยวข้อง

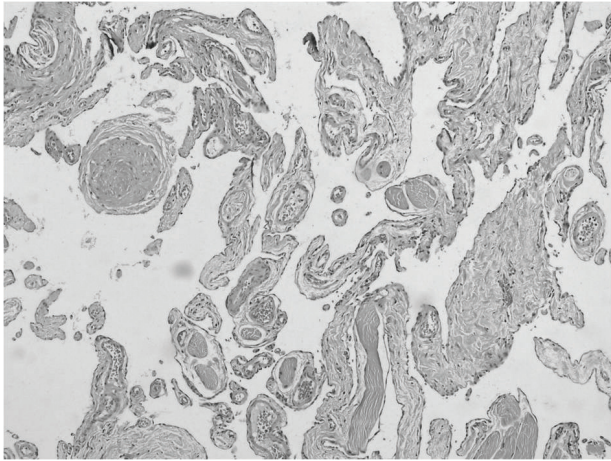
■ รายงานผู้ป่วย

ผู้ป่วยหญิงไทย อายุ 41 ปี มาพบแพทย์ที่ห้องตรวจหู คอ จมูก โรงพยาบาลศูนย์การแพทย์สมเด็จพระเทพรัตนราชสุดาฯ สยามบรมราชกุมารี ด้วยอาการมีก้อนที่พื้นปากด้านขวามานาน 1 ปี โดยก้อนนี้โตขึ้นอย่างช้าๆ และไม่เจ็บ เธอไม่เคยมีประวัติได้รับอุบัติเหตุหรือการติดเชื้อที่บริเวณนี้มาก่อนและไม่มีประวัติโรคการเจริญผิดปกติของหลอดเลือดหรือหลอดน้ำเหลืองในครอบครัวและในอดีต การตรวจร่างกายพบ

เป็นก้อนเนื้อที่พื้นปากด้านขวาโตข้ามไปด้านซ้ายเล็กน้อย ก้อนมีขนาดประมาณ 4 x 5 ซม. มีลักษณะนุ่มคล้ายถุงน้ำ ก้อนนี้ทำให้ด้านหน้าของลิ้นยกตัวขึ้นเล็กน้อย เยื่อบุผิวพื้นปากไม่มีลักษณะบวมแดง การตรวจอื่นๆ ทางหู คอ จมูกไม่พบสิ่งผิดปกติเพิ่ม การตรวจทางห้องปฏิบัติการ เช่น การตรวจเลือด ตรวจปัสสาวะ ตรวจภาพรังสีปอดอยู่ในเกณฑ์ปกติ ผู้ป่วยได้รับการส่งตรวจ Magnetic Resonance Imaging (MRI) ที่บริเวณคอ ผลที่ได้พบเป็นก้อนเนื้อกลมรี ขอบเขตชัดที่บริเวณใต้ลิ้นด้านขวา ขนาด 2.6 x 4.8 x 4.6 ซม. ซึ่งแสดงลักษณะ isosignal intensity ใน T1W, hypersignal intensity ใน T2W และมี diffuse enhancement (รูปที่ 1) ไม่พบว่ามีการลุกลามไปสู่อวัยวะที่อยู่โดยรอบ จากลักษณะของ MRI ที่พบจึงให้การวินิจฉัยว่าน่าจะเป็น hemangioma ผู้ป่วยได้รับการตรวจเพิ่มโดยส่งทำ Magnetic Resonance Angiography (MRA) พบมีเส้นเลือดมาเลี้ยงที่ก้อนจากเส้นเลือดแดง right lingual และ facial ผู้ป่วยได้รับการผ่าตัดเพื่อเอาก้อนออกภายใต้การใช้ยาสลบพร้อมกับส่งชิ้นเนื้อเพื่อตรวจทางพยาธิวิทยา ผลชิ้นเนื้อพบลักษณะเป็นก้อนเนื้อกลมรี สีน้ำตาลเข้ม ขนาด 3 x 2.8 x 2.5 ซม. ผลการตรวจด้วยกล้องจุลทรรศน์พบเนื้อเยื่อประกอบไปด้วยกลุ่มของหลอดเลือดและหลอดน้ำเหลืองที่ขยายตัวและคดเคี้ยวเป็นจำนวนมาก แทรกกระจายอยู่ในกล้ามเนื้อ (รูปที่ 2) จึงให้การวินิจฉัยว่าเป็น intramuscular hemangiolymphangioma หลังผ่าตัดผู้ป่วยได้รับการติดตามดูแลอยู่นาน 1 ปีครึ่ง โดยไม่พบการเกิดโรคซ้ำ



รูปที่ 1 Magnetic Resonance Imaging (MRI) ที่บริเวณคอ แสดงก้อนเนื้อกลมรีขอบเขตชัดเจนที่บริเวณพื้นที่ปากใต้ลิ้น ก้อนมีลักษณะ enhancing และเบียดดันกล้ามเนื้อของลิ้น



รูปที่ 2 แสดงชิ้นเนื้อประกอบด้วยหลอดเลือดน้ำเหลืองผนังบางที่ขยายตัวผสมกับหลอดเลือดที่มีความผิดปกติของผนังและมีเม็ดเลือดแดงอยู่ภายใน นอกจากนี้ ยังพบกล้ามเนื้อแทรกอยู่ด้วย (H&E, x100)

■ อภิปรายผู้ป่วย

Hemangiolympangioma เป็นการเจริญผิดปกติของหลอดเลือดและหลอดเลือดน้ำเหลืองที่เกิดร่วมกันและได้รับการพิจารณาว่าเป็นรูปแบบหนึ่งของ lymphangioma ที่มีการเปลี่ยนแปลงไปจากปกติ โดยมีส่วนประกอบของหลอดเลือดที่ผิดปกติอยู่ด้วย ลักษณะดังกล่าวนี้ทำให้มันมีความแตกต่างไปจาก lymphangioma ธรรมดาทั้ง 4 แบบ⁸ ได้แก่ lymphangioma simplex (capillary lymphangioma, lymphangioma circumscriptum), cavernous lymphangioma, cystic lymphangioma (cystic hygroma) และ benign lymphangiendothelioma (acquired progressive lymphangioma)

โรค lymphangioma, hemangioma และโรคเกี่ยวกับการเจริญผิดปกติของหลอดเลือด (vascular malformation) เชื่อว่ามีพยาธิกำเนิดที่มีความสัมพันธ์กัน โดยเกิดจากความผิดปกติทางพัฒนาการของ vasculogenesis ในช่วงที่เป็นตัวอ่อน (embryo) ในส่วนของ lymphangioma นั้น น่าจะมีสาเหตุจาก abnormal sequestration ของ lymphatic structures หรือความล้มเหลวของการเชื่อมต่อกันระหว่าง lymphatic ducts กับ venous system หรือเกิดจากทั้งสองสาเหตุ⁹ โดยมีเหตุผลสนับสนุนจากการที่ lymphangioma มักพบได้บ่อยในเด็กเล็กและเกิดขึ้นที่บริเวณของ primitive lymphatic sacs ซึ่งได้แก่ คอและรักแร้ แต่ในอีกมุมมองหนึ่ง แพทย์บางคนเชื่อว่า lymphangioma เป็นเนื้องอกจริงๆ ที่เกิดมาจาก endothelial cells หรือ stromal cells¹⁰ อย่างไร

ก็ตาม ได้มีงานวิจัยที่พบ lymphangiogenic growth factors ซึ่งมีบทบาทในการทำให้เกิดเป็น lymphangioma โดยตัวที่สำคัญได้แก่ vascular endothelial growth factor (VEGF)-C และ vascular endothelial growth factor receptor 3 (VEGFR-3)¹¹ ในส่วนของ hemangioma จะมีความแตกต่างจาก vascular malformation ตรงที่มีลักษณะ endothelial hyperplasia แต่ใน vascular malformation ไม่มี Mulliken and Glowacki¹² ได้แบ่ง vascular malformation ออกเป็น 2 ชนิด ได้แก่ ชนิด high-flow (arterial, arteriovenous) และชนิด slow-flow (venous, capillary, lymphatic) นอกจากนี้ hemangioma ยังมีลักษณะยุบหายได้เองเมื่อเด็กโตขึ้น แต่ vascular malformation มักจะโตตามตัว

แม้ว่า hemangiolympangioma จะพบได้ไม่บ่อย แต่ก็เคยมีรายงานพบในผู้ป่วยโรค Klippel-Trenaunay-Weber syndrome¹³ ที่ประกอบด้วย vascular malformation ของผิวหนัง ความผิดปกติของหลอดเลือดและหลอดเลือดน้ำเหลือง และแขนขาโตไม่เท่ากัน ลักษณะที่สำคัญของ hemangiolympangioma ที่ทำให้แตกต่างจาก lymphangioma หรือ hemangioma ธรรมดา คือ การลุกลามสู่อวัยวะรอบๆ และการกลับเป็นซ้ำได้บ่อย แต่อย่างไรก็ตาม พบการกลายเป็นมะเร็งได้น้อยมาก¹⁴

การวินิจฉัย lymphangioma หรือ hemangiolympangioma ต้องใช้การตรวจเนื้อเยื่อด้วยกล้องจุลทรรศน์ อย่างไรก็ตาม การตรวจทางรังสีวิทยา เช่น ultrasonography (US), CT scanning และ MRI อาจมีประโยชน์สำหรับการวินิจฉัยเบื้องต้น US และ CT scanning มักแสดงรอยโรคแบบ multicystic ที่มีขอบเขตชัดเจน ส่วน MRI จะให้ข้อมูลดีกว่า โดยจะแสดงลักษณะ low signal intensity ใน T1W และ high signal intensity ใน T2W สำหรับการทำ angiography ไม่ช่วยในการวินิจฉัยเพิ่มเติม ในผู้ป่วยรายนี้ส่งทำ MRI พบเป็น isosignal intensity ใน T1W, high signal intensity ใน T2W และมี diffuse enhancement ซึ่งทำให้สงสัยโรค hemangioma จึงได้ส่งทำ MRA เพิ่ม เพื่อต้องการดูเส้นเลือดที่มาเลี้ยงและการวางแผนในการผ่าตัด

การรักษา lymphangioma สามารถทำได้ 2 วิธี คือ การผ่าตัดเอาก่อนออกกับการใช้วิธีอื่นที่ไม่ใช่การผ่าตัด เช่น diathermy, cryotherapy, radiotherapy, fibrin glue และ sclerotherapy เป็นต้น สำหรับสารที่ใช้ในการทำ sclerotherapy มีหลายชนิด เช่น dextrose, hypertonic saline, tetracycline, doxycycline, acetic acid, ethanol, cyclophosphamide, bleomycin และ OK-432 (Picibanil) เป็นต้น

แต่ที่มีรายงานว่าได้ผลดีและมีความปลอดภัย คือ OK-432 และ bleomycin¹⁵ อย่างไรก็ตาม การตัดออกให้หมดยังถือว่าเป็นการรักษาที่แนะนำ¹⁶ โดยมักนิยมใช้เครื่องมือพวก Lasers และ radiofrequency มาช่วย เนื่องจากทำให้เลือดออกน้อย ผู้ป่วยรายนี้ได้รับการรักษาด้วยการผ่าตัดก้อนพร้อมกับเนื้อเยื่อที่ติดอยู่รอบๆ ออก ซึ่งผลชิ้นเนื้อรายงานว่า เป็น intramuscular hemangiolympangioma หลังผ่าตัด จำเป็นต้องติดตามผู้ป่วยต่อไปอีกเป็นเวลานานเนื่องจากโอกาสกลับมาเป็นซ้ำมีสูง ในผู้ป่วยรายนี้ได้มาติดตามการรักษาอยู่นาน 1 ปีครึ่ง โดยยังไม่พบการกลับเป็นซ้ำ

■ สรุป

ได้รายงานผู้ป่วย hemangiolympangioma ที่พื้นปากจำนวนราย การทำ MRI และ MRA ไม่สามารถแยกออกจาก hemangioma ได้ อย่างไรก็ตาม เมื่อผ่าตัดเอาก้อนเนื้อออกไปตรวจผลชิ้นเนื้อพบว่าเป็น intramuscular hemangiolympangioma หลังผ่าตัดผู้ป่วยได้มาติดตามดูแลอยู่นานปีครึ่ง โดยยังไม่พบการกลับเป็นซ้ำแต่ยังคงต้องติดตามต่อไปเนื่องจากมีโอกาสเกิดสูง

เอกสารอ้างอิง

1. Donnelly LF, Adams DM, Bisset GS. Vascular malformations and hemangiomas: a practical approach in a multidisciplinary clinic. Am J Roentgenol 2000;174:597-608.
2. Tseng JJ, Chou MM, Ho ES. Fetal axillary hemangiolympangioma with secondary intralesional bleeding: serial ultrasound findings. Ultrasound Obstet Gynecol 2002;19:403-6.
3. Handra-Luca A, Montgomery E. Vascular malformations and hemangiolympangiomas of the gastrointestinal tract: morphological features and clinical impact. Int J Clin Exp Pathol 2011;4(5):430-43.
4. Shin YS, Doo AR, Kim MK, et al. Cavernous Hemangiolympangioma of the Testis without Cutaneous Hemangiomatosis in an Elderly Patient. Korean J Urol 2012;53:810-2.
5. Shetty DC, Urs AB, Rai HC, et al. Case series on vascular malformation and their review with regard to terminology and categorization. Contemp Clin Dent 2010;1:259-62.
6. Giacalone PL, Boulot P, Marty M, et al. Fetal hemangiolympangioma: a case report. Fetal Diagn Ther 1993;8:338-40.
7. Seong Soo K. Intraosseous haemangiolympangioma of the mandible: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillo Surgeons 2003;29:182-5.
8. Meher R, Garg A, Raj A, et al. Lymphangioma of tongue. Internet J Otorhinolaryngology. 2005; doi: 10.5580/29bf
9. Rice JP, Crson SH. A case report of lingual lymphangioma presenting as recurrent massive tongue enlargement. Clin Pediatr Phila 1985;24:47-50.
10. Huang HS, Ho CC, Huang PH, et al. Co- expression of VEGF-C and its receptors, VEGFR-2 and VEGFR-3, in endothelial cells of lymphangioma. Implication in autocrine or paracrine regulation of lymphangioma. Lab Invest 2001;81:1729-34.
11. Itakura E, Yamamoto H, Oda Y, et al. VEGF-C and VEGFR-3 in a series of lymphangiomas: is superficial lymphangioma a true lymphangioma? Virchows Arch 2009;454:317-25.
12. Mulliken JB, Glowacki J. Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. Plast Reconstr Surg 1982;69(3):412-22.
13. Paladini D, Lamberti A, Teodoro A, et al. Prenatal diagnosis and hemodynamic evaluation of Klippel-Trenaunay-Weber syndrome. Ultrasound Obstet Gynecol 1998;12:215-7.

14. Engel JD, Kuzel TM, Moceanu MC, et al. Angiosarcoma of the bladder: a review. *Urology* 1998;52:778-84.
15. Acevedo JL, Shah RK, Brietzke SE. Nonsurgical therapies for lymphangiomas: A systematic review. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;138(4):418-24.
16. Stanescu L, Georgescu EF, Simionescu C, et al. Lymphangioma of the oral cavity. *Romanion J Morph Embryolog* 2006;47:373-7.

