

Cholesterolinė granuloma valemulėje: klinikinis atvejis

Jūratė Vertelytė

Medicinos fakultetas, Vilniaus universitetas, Vilnius, Lietuva
Faculty of Medicine, Vilnius University, Vilnius, Lithuania
El. paštas jurate.vertelyte@mf.stud.vu.lt

Arnoldas Morozas

Medicinos fakultetas, Vilniaus universitetas, Vilnius, Lietuva
Faculty of Medicine, Vilnius University, Vilnius, Lithuania
Ausų, nosies, gerklės ir akių ligų klinika, Klinikinės medicinos institutas, Medicinos fakultetas, Vilniaus universitetas, Vilnius, Lietuva
Clinic of Ear, Nose, Throat and Eyes Diseases, Institute of Clinical Medicine, Faculty of Medicine, Vilnius University, Vilnius, Lithuania
El. paštas arnoldas.morozas@santa.lt

Santrauka. *Išvadas.* Cholesterolinė granuloma – retas gerybinis cistinis darinys. Jam būdinga cistą gaubianti kapsulė ir cistos skystis su cholesterolio kristalais, daugiabrandoelėmis gigantinėmis ląstelėmis, eritrocitais ir hemosiderinu. Dažniausiai cholesterolinės granulomos pažeidžia smilkinkaulį. Mokslinėje literatūroje aprašyta pavienių cholesterolinių granulomų atvejų kituose organuose, tačiau nėra duomenų apie cholesterolinę granulomą gerklų srityje. *Straipsnio tikslas* – pristatyti gerklų cholesterolinės granulomos atvejį. *Klinikinis atvejis.* 55 m. vyras kreipėsi į Ausų, nosies ir gerklės centrą dėl nuolatinio prikimumo, svetimkūnio pojūčio gerklėje ir komplikuotos intubacijos, kurią sukėlė gerklose nustatytas darinys. Videolaringoskopijos metu pastebėtas stambus, į cistą panašus darinys valemulės srityje, buvo matyti užpakalinės ryklės sienos link nustumtas antgerklis, tarpvedeginės įlankos ir vedeginių gumburų eritema. Atlikta kaklo kompiuterinė tomografija patvirtino cistinį darinį antgerkliaus liežuviniam paviršiuje. Remiantis tyrimo duomenimis ir klinikiniais simptomais, diagnozuotas lėtinis laringitas, gastroezofaginis refluksas ir nepatikslingas gerybinis kvėpavimo sistemos navikas. Suplanuotas chirurginis gydymas. Pacientui atlikta mikrolaringoskopija ir chirurginė cistos ekstirpacija, naudojant CO₂ lazerį. Atvėrus cistą, pastebėtas gelsvas, blizgantis, klampus skystis. Po dviejų dienų atlikus laringoskopiją, buvusios cistos vietoje aptikta fibrino apnašų. Darinį ištyrus histologiškai, nustatyta cholesterolinė granuloma. *Išvadas.* Cholesterolinių granulomų ir, apskritai, darinių valemulėje aptinkama retai, tačiau cholesterolinė granuloma gali būti įtraukta į gerklų cistinių darinių diferencinę diagnostiką.

Reikšminiai žodžiai: cholesterolinė granuloma, valemulės darinys, gerklų granuloma.

Vallecular Cholesterol Granuloma: Case Report

Abstract. *Introduction.* Cholesterol granuloma is a rare benign cystic neoplasm characterised by a fibrous capsule, and a cystic fluid containing cholesterol crystals, multinucleated giant cells, erythrocytes and haemosiderin. Cholesterol granulomas are usually found in diverse parts of the temporal bone, most commonly – petrous apex. Very few cases of cholesterol granulomas in other organs have been reported, to our knowledge none are reported in the larynx. The main purpose of this case report is to highlight this extremely rare laryngeal lesion and its unique macroscopic appearance. *Case report.* A 55-year-old man is referred to the Ear, Nose and Throat Centre because of persistent hoarseness, globus sensation and complicated intubation due to a mass in the larynx. Videolaryngoscopy showed a large cyst-like mass in the vallecula, epiglottis was displaced towards the posterior pharyngeal wall and erythema of interarytenoid notch and arytenoid tubercle was present. A computerized tomography scan confirmed a cystic mass on the lingual surface of the epiglottis. On the basis of the examination and clinical symptoms, a diagnosis of chronic laryngitis, gastro-oesophageal reflux and an unspecified benign tumour of the respiratory system was made, surgical treatment was planned. The patient underwent microlaryngoscopy and surgical extirpation of the cyst using a CO₂ laser, as the cyst was opened a yellowish, shiny, viscous fluid was observed. Two days later, laryngoscopy revealed fibrin plaque at the site of the cyst. Final diagnosis of cholesterol granuloma was formed based on histological examination of the mass. *Conclusions.* Cholesterol granulomas and masses in vallecula are extremely rare, but this case shows that cholesterol granuloma can be included in the differential diagnosis of cystic neoplasms of the larynx.

Key words: cholesterol granuloma, vallecular mass, laryngeal granuloma.

Received: 2023/02/20. Accepted: 2023/03/31.

Copyright © 2023 Jūratė Vertelytė, Arnoldas Morozas. Published by Vilnius University Press. This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Licence, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original author and source are credited.

Įvadas

Cholesterolinė granuloma (CG) – retas gerybinis cistinis darinys. Jam būdinga fibrozinė cistos kapsulė ir skystis su cholesterolio kristalais, daugiabranduolėmis gigantinėmis ląstelėmis, eritrocitais ir hemosiderinu [1, 2]. Manoma, kad kraujavimas, drenažo obstrukcija, sutrikusi ventilacija ir uždegimas yra pagrindiniai CG patogenezės veiksniai [3, 4]. Yrant uždaroje ertmėse išsiliejusiam kraujui, formuojasi hemosiderinas, cholesterolio kristalai. Makrofagų reakcija į cholesterolio kristalus kaip svetimkūnį lemia uždegiminę granulomatozinę reakciją [4, 5].

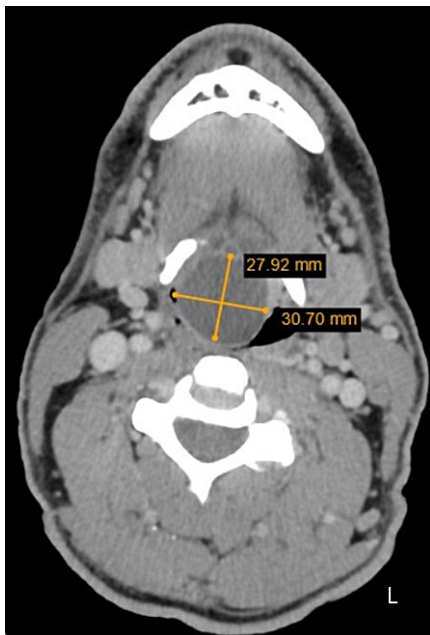
CG dažniausiai diagnozuojamos smilkinkaulyje, uolinės dalies viršūnėje [1, 6]. Mokslinėje literatūroje aprašoma pavienių CG atvejų plaučiuose, skydliaukėje, kiaušidėse, krūtyje, orbitofrontalinėje nosies pertvaros srityje, skydliaukėje, inkstuose, kasoje ir kepenyse [3, 4, 7–13]. CG dažnis smilkinkaulio uolinės dalies viršūnėje siekia apie 0,6 atvejo 1 mln. gyventojų, taigi tai itin retas pažeidimas, tačiau 10 kartų dažnesnis negu cholesteatomos šioje srityje [14]. Apie CG atvejus gerklose duomenų nėra.

Pagrindinis publikacijos tikslas – pristatyti išskirtinį klinikinį atvejį: itin retą, tačiau galimą gerklų darinį ir jo unikalų makroskopinį vaizdą.

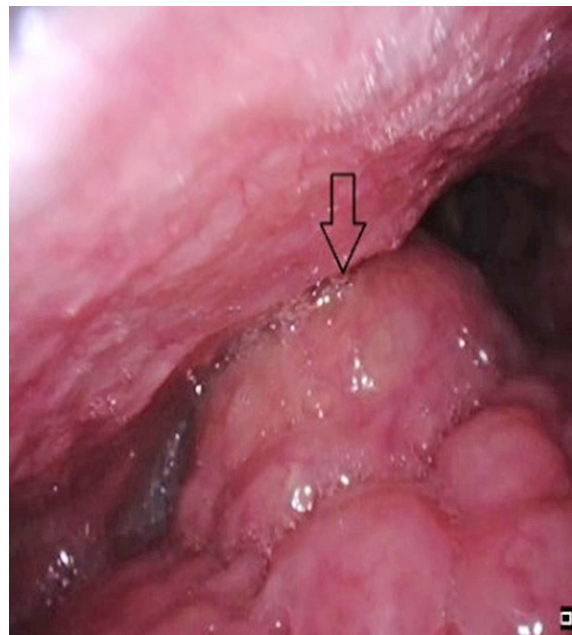
Klinikinis atvejis

55 m. vyras kreipėsi konsultacijos į ausų, nosies ir gerklės (ANG) gydytoją dėl intubacijos metu gerklose pastebėto darinio, kuris apsunkino intubaciją. Pacientas teigė, kad jau porą metų vargina nuolatinis prikimimas, svetimkūnio pojūtis gerklėje. Rijimo sutrikimo nenurodė. Pacientas rūko (maždaug 20 cigarečių per dieną). Serga tulžies pūslės akmenlige, numatyta tulžies pūslės laparoskopinė operacija.

Atlikta kaklo kompiuterinė tomografija (KT) patvirtino 37 mm x 28 mm x 30 mm dydžio į cistą panašų darinį antgerklės liežuviniame paviršiuje. Pasiūlyta darinį diferencijuoti su dermoidine cista (žr. 1 pav.).



1 pav. Paciento kaklo KT su kontrastu (antgerklės liežuviniame paviršiuje matyti homogeniškas, cistinis, plonasienis darinys)

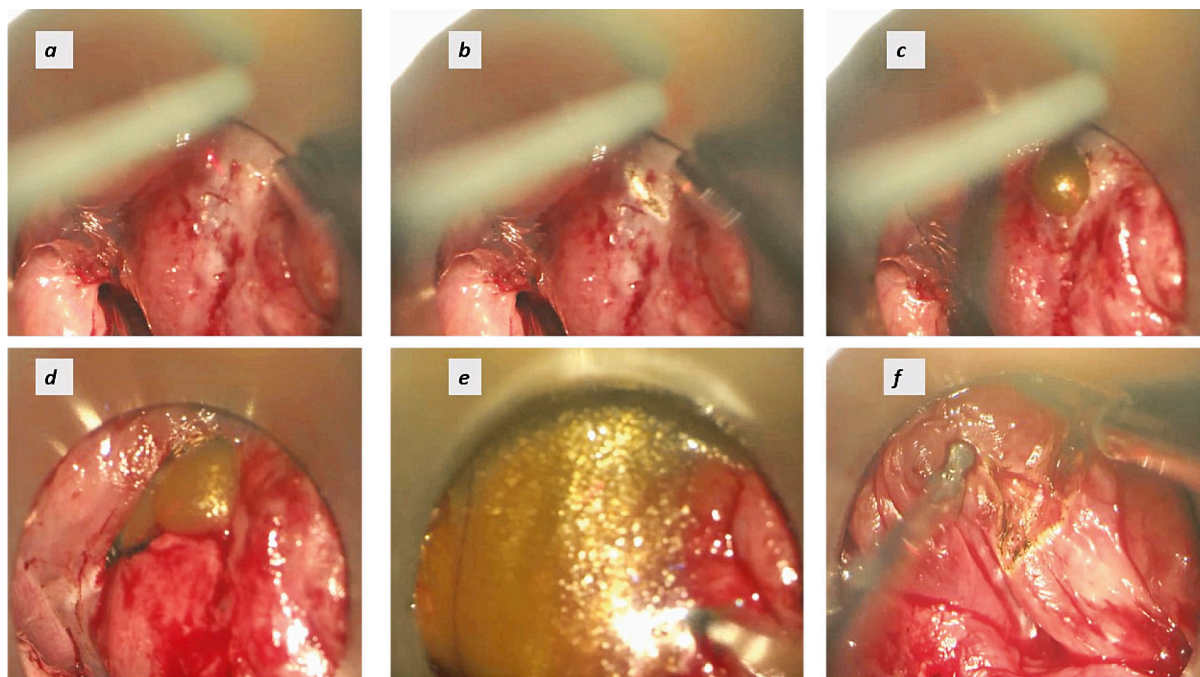


2 pav. Laringoskopijos vaizdas: valekulėje matyti didelis, apvalus, panašus į cistą darinys (pažymėtas rodykle)

Atliekant videolaringoskopiją, buvo matyti užpakalinės ryklės sienelės link nustumtas antgerklis. Antgerklis beveik lietsi su užpakaline ryklės siena. Nustatyti paraudę vedeginiai gumburai ir tarpvedeginė įlanka. Vėlekulėje pastebėtas didelis, apvalus darinys, panašus į cistą (žr. 2 pav.). Balso klostės pilkos, judrios, fonuojant glaudėsi. Balso plyšys laisvas, kvėpuoti pakankamas.

Remiantis gautais duomenimis ir klinikiniais simptomais, pacientui diagnozuotas lėtinis laringitas, gastroezofaginio reflukso liga ir nepatikslintas kvėpavimo sistemos gerybinis navikas. Suplanuotas chirurginis cistinio darinio gydymas.

Pritaikius bendrąją intubacinę nejautrą, pacientui atlikta mikrolaringoskopija ir chirurginė gerklų cistinio darinio ekstirpacija, naudojant CO₂ lazerį. Atvėrus cistą pastebėtas gelsvas, blizgantis, klampus skystis (žr. 3c, 3d, 3e pav.). Pašalinti audiniai (cistos kapsulė ir skystis) išsiųsti tirti histologiškai. Operacijos metu ir ankstyvuju pooperaciniu laikotarpiu komplikacijų nekilo.



3 pav. Mikrolaringoskopijos vaizdas: cistinio darinio ekstirpacija CO₂ lazeriu

Cistos skystis išsiųstas tirti mikrobiologiškai. Anaerobų, kitų patogeninių ir sąlygiškai patogeninių bakterijų cistos skystyje neišaugo.

Praėjus dviem dienoms po operacijos, larigoskopijos metu apžiūrint paciento gerklas buvusios cistos vietoje aptikta fibrino apnašų (žr. 4 pav.). Antgerklis padėtis liko panaši kaip ir prieš operaciją. Balso klostės buvo judrios, fonuojant glaudėsi, jų paviršius lygus, balso plyšys laisvas, kvėpuoti pakankamas.

Mikroskopiniame cistos ir jos skysčio vaizde buvo matyti eozinofiliškos masės, daugiasluoksnio plokščio epitelio fragmentų, fibrino su leukocitais ir cholesterolio kristalais. Galiausiai, remiantis histologiniu operacinės medžiagos tyrimu, diagnozuota gerklų cholesterolinė granuloma.

Bendrai būklei pagerėjus, ligonis išleistas gydytis ambulatoriškai. Paskirta pakartotinė konsultacija po savaitės. Atsiradus kraujavimui ar atsikosėjimui krauju, pacientui rekomenduota skubiai atvykti otorinolaringologo konsultacijos.



4 pav. Pooperacinės laringoskopijos vaizdas: buvusios cistos vietoje matyti fibrino apnašų

Diskusija

CG – gerybinė patologija, dažniausiai pasitaikanti smilkinkaulio uolinės dalies viršūnėje. CG sudaro iki 40 proc. minėtos srities pažeidimų [1, 2]. Mokslinėje literatūroje aprašyta ir pavienių CG atvejų kituose organuose, pavyzdžiui, kiaušidėse, krūtyse, skydliaukėje, inkstuose, kasoje ir kepenyse [7–9]. Apie CG atvejus gerklose duomenų nėra.

Pacientų, kuriems diagnozuojama CG, anamnezėse neretai nurodoma trauma, chirurginė procedūra, biopsija ar kitų etiologijų, kraujavimas CG formavimosi vietoje [1, 5, 6, 12]. Analizuojamu atveju sunku nustatyti, kas galėjo lemti kraujavimą ir granulomatozinę uždegiminę reakciją valemulės srityje. Mokslinėje literatūroje vyrauja dvi CG patogenezės hipotezės: obstrukcijos–vakuumo ir atvirų kaulų čiulpų [3]. Abi teorijos apima svarbiausius patogenezės aspektus: kraujavimą, drenažo obstrukciją, ventilacijos sutrikimą ir uždegimą [15]. Manoma, kad dėl kraujavimo uždaroje ertmėje susidarę kraujo irimo produktai lemia uždegiminę, makrofagų medijuojamą granulomatozinę reakciją prieš svetimkūnį – hemosideriną, cholesterolio kristalus [15, 16].

CG dažniausiai simptomų nesukelia. Jei simptomų yra, jie susiję su mechaniniu masės poveikiu. CG kliniškinis pasireiškimas priklauso nuo granulomos lokalizacijos. Smilkinkaulio CG gali pasireikšti klausos praradimu, galvos svaigimu, spengimu ausyse, galvos skausmu, diplopija [2, 17]. Aprašytu gerklų CG atveju pacientas skundėsi svetimkūnio pojūčiu gerklėje. Tai galima sieti su valemulėje susiformavusia granuloma ir jos mechaniniu spaudimu aplinkiniams audiniams. Prikimimas aptartu atveju galimas dėl CG būdingos audinių uždegiminės reakcijos ir gastroezofaginio reflukso ligos sąlygoto gerklų uždegimo [18].

Siekiant diagnozuoti CG ir diferencijuoti ją su kitais dariniais, naudojama kompiuterinė tomografija (KT) ar magnetinio rezonanso tomografija (MRT) [17, 19–21]. Atliekant KT, CG matyti kaip gerai apribotas, inkapsuliuotas, kontrasto nekaupiantis darinys [17, 19]. Smilkinkaulio uolinės dalies viršūnės CG atveju pastebima, kad darinys izodensinis smegenims, gali būti nustatoma trabekulinio kaulinio audinio erozija aplink darinį [4, 17, 19]. Baltymų ir kraujo irimo produktų gausus cistos skystis lemia MRT CG hiperintensyvų vaizdą T1, T2 ir FLAIR (angl. *fluid attenuated inversion recovery*) sekose [17, 19]. Analissos Pace ir bendraautorų [1] straipsnyje apie ausies būgnelio (mastoidinės srities) CG pabrėžiamas MRT pranašumas prieš KT. Kaip teigia tyrėjai, MRT stebimas CG vaizdas yra specifiškesnis, vertingesnis planuojant ausies būg-

nelio (mastoidinės srities) CG operaciją bei diferencijuojant darinį su kontrasto nekaupiančiais dariniiais ir cholesteatoma [1]. Galbūt aptartu gerklų CG atveju MRT vaizdas būtų specifškesnis, parankesnis minkštųjų audinių vizualizacijai [21], tačiau ir KT tyrimas buvo pakankamai informatyvus, siekiant suplanuoti operacinį gydymą, nustatyti cistinį darinio pobūdį. KT ar MRT tipišką vaizdą leidžia tik įtarti ligą. Galutinei CG diagnozei patvirtinti reikalingas histologinis darinio tyrimas [1, 10, 15].

Apskritai, dariniai vaskulės srityje yra reti. Vaskulės srityje gausu limfoidinio ir liaukinio audinių, todėl dažniausiai vaskulėje pasitaiko smulkių, gerybinių gleivinės cistų, nesukeliančių simptomų ir diagnozuojamų atsiktinai. Didesni dariniai gali būti gleivinės (latakų) cistos ir piktybiniai dariniai, kilę iš liežuvio šaknies arba viršutinės gerklų srities, rečiau – mažo piktybiškumo mažųjų seilių liaukų dariniai, kraujagyslinės anomalijos, lipomos, dermoidinės ir epidermoidinės cistos [21].

Aptartu gerklų CG atveju, atsižvelgus į cistos keliamus simptomus ir didelę cistos dydį, pacientui indukuotas chirurginis gydymas ir cistos ekstirpacija [5, 10, 21]. Priklausomai nuo lokalizacijos, CG gali būti asimptomė [5, 6]. Asimptomę smilkinkaulio CG galima pastebėti atliekant KT. Pastebėjus greitą darinio augimą ar atsiradus simptomų, reikalingas chirurginis CG šalinimas [2, 22]. Esant orbitofrontalinės srities CG, visada indikuojamas operacinis gydymas [13].

Nagrinetu atveju paciento prognozė gera. Bendras CG pasikartojimo dažnis įprastai yra nedidelis – apie 7,5 proc. [23].

Išvada

Cholesterolinių granulomų ir, apskritai, darinių vaskulėje aptinkama retai, tačiau šių darinių formavimasis gerklose yra galimas. Cholesterolinė granuloma gali būti įtraukta į gerklų cistinių darinių diferencinę diagnostiką.

Literatūra

1. Pace A, Iannella G, Riminucci M, Corsi A, Magliulo G. Tympano-Mastoid Cholesterol Granuloma: Case Report and Review of the Literature. *Clin Med Insights Case Rep* 2020; 13: 1179547620958728.
2. Azevedo SR, Mendes G, Coutinho MB, Almeida e Sousa C. Nasopharyngeal Approach to a Cholesterol Granuloma of the Petrous Apex. *Ear Nose Throat J* 2021; 01455613211028074.
3. Kuperan AB, Gaffey MM, Langer PD, Mirani NM, Liu JK, Eloy JA. Nasoseptal Cholesterol Granuloma: A Case Report and Review of Pathogenesis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2012; 138(1): 83–86.
4. Ahmetgjekaj I, Harizi E, Rahman A, Hyseni F, Nasir F, Decka A, Rahman M, Shemi K, Salij K, Akram S, Kola I, Musa J. Giant cholesterol granuloma of petrous apex. *Radiol Case Rep* 2022; 17(4): 1220–1224.
5. Royer MC, Pensak ML. Cholesterol granulomas. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2007; 15(5): 319–322.
6. Ekici NY. Huge Cholesterol Granuloma in Nasoseptal Region. *Ear Nose Throat J* 2021; 100(6): NP278–NP280.
7. Sagnic S, Bakir MS, Birge Ö, Karadag C, Boduroglu A, Tuncer HA, Simsek T. Cholesterol granuloma mimicking ovarian cancer. *Int J Clin Exp Pathol* 2021; 14(6): 741–745.
8. Kim WW. Cholesterol Granuloma of the Thyroid Mimicking Malignancy. *OTO Open* 2017; 1(1): 2473974X17701092.
9. Kim YS, Chang JM. Sonographic appearance of a cholesterol granuloma mimicking breast cancer. *J Clin Ultrasound* 2017; 45(9): 608–611.
10. Hassen SS, Ali GA, Ahmed AO, Goravey W. Cholesterol Granuloma: An Underrecognized Cause of Benign Lung Granuloma. *Eur J Case Rep Intern Med* 2022; 9(3): 003264.
11. Yan J, Cai Y, Liu R, Lin J, Li J. Cholesterol Granuloma of the Orbit. *J Craniofac Surg* 2015; 26(2): e124–126.
12. Kim SJ. Increasing Size of Cholesterol Granuloma of the Breast in the Vicinity of a Previous Breast Biopsy: Imaging Features and Review of the Literature. *Am J Case Rep* 2019; 20: 370–376.

13. Ugga L, Stilo S, Napolitano P, Guadagno E, Iuliano A, Del Basso de Caro ML, Elefante A. Orbitofrontal cholesterol granuloma: case report and review of the literature. *Quant Imaging Med Surg* 2017; 7(3): 373–377.
14. Isaacson B. Cholesterol Granuloma and Other Petrous Apex Lesions. *Otolaryngologic Clinics of North America* 2015; 48(2): 361–373.
15. Kuruma T, Tanigawa T, Uchida Y, Tetsuya O, Ueda H. Large Cholesterol Granuloma of the Middle Ear Eroding into the Middle Cranial Fossa. *Case Rep Otolaryngol* 2017; 2017: 4793786.
16. Manabe T, Oka S, Ono K. Multifocal cholesterol granulomas of the anterior mediastinum. *Surg Case Rep* 2020; 6(1): 182.
17. Potter GM, Siripurapu R. Imaging of Petrous Apex Lesions. *Neuroimaging Clin N Am* 2021; 31(4): 523–540.
18. Stachler RJ, Francis DO, Schwartz SR, Damask CC, Digoy GP, Krouse HJ, McCoy SJ, Ouellette DR, Patel RR, Reavis CCW, Smith LJ, Smith M, Strode SW, Woo P, Nnacheta LC. Clinical Practice Guideline: Hoarseness (Dysphonia) (Update). *Otolaryngol Head Neck Surg* 2018; 158: S1–S42.
19. Dinh CT, Goncalves S, Bhatia R, Truong K, Telischi F, Angeli S, Morcos J, Eshraghi AA. Atypical radiographic features of skull base cholesterol granuloma. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2016; 273(6): 1425–1431.
20. Hoa M, House JW, Linthicum FH, Go JL. Petrous apex cholesterol granuloma: pictorial review of radiological considerations in diagnosis and surgical histopathology. *J Laryngol Otol* 2013; 127(4): 339–348.
21. Lahiri AK, Somashekar KK, Wittkop B, Ayshford C. Large Vallecular Masses; Differential Diagnosis and Imaging Features. *J Clin Imaging Sci* 2018; 8: 26.
22. Li KL, Agarwal V, Moskowitz HS, Abuzeid WM. Surgical approaches to the petrous apex. *World J Otorhinolaryngol Head Neck Surg* 2020; 6(2): 106–114.
23. Fieux M, Daubie S, Pialat JB, Tringali S. Petrous Apex Cholesterol Granuloma Revealed by Facial Palsy. *Ann Neurol* 2021; 89(2): 414–415.