

Rolul ecografiei în diagnosticul și urmărirea tratamentului hemangioamelor infantile parotidiene – prezentări de caz

Role of ultrasound in diagnosis and follow up of parotid gland infantile hemangioma – case series presentation

Asist. Univ. Dr. Ioana Florentina CODREANU^{1,2}, Asist. Univ. Dr. Valentina-Daniela COMĂNICI^{1,2},
Asist. Univ. Dr. Iustina Violeta STAN^{1,2}, Asist. Univ. Dr. Anca BALĂNESCU^{1,2}, Asist. Univ. Dr. Beata ACS^{1,2},
Asist. Univ. Dr. Mirela RITIVOIU^{1,2}, Asist. Univ. Dr. Ana Maria Alexandra STĂNESCU²,
Prof. Dr. Dumitru MATEI¹

¹Institutul Național pentru Sănătatea Mamei și Copilului „Alessandrescu-Russescu”, București

²Universitatea de Medicină și Farmacie „Carol Davila”, București

REZUMAT

Hemangioamele infantile reprezintă cele mai frecvente tumori vasculare identificate la copii, cu o incidență ce ajunge până la 10%. Pe lângă localizarea lor la nivel tegumentar, hemangioamele infantile se pot dezvolta și la nivel visceral. Tumorile salivare la copii au o incidență scăzută, cele mai frecvente dintre ele fiind reprezentate de hemangioamele infantile situate la nivelul glandelor parotide. Utilizarea ecografiei în diagnosticul hemangioamelor infantile reprezintă o unealtă importantă în practica medicală și, de asemenea, ultrasonografia și-a dovedit utilitatea și în evaluarea răspunsului la tratament.

Cuvinte cheie: hemangiom infantil, hemangiom infantil parotidian, ecografie parotidiană, propranolol

ABSTRACT

With an incidence reaching almost 10%, infantile hemangiomas represent the most common tumors of infancy. Although the majority of hemangiomas develop on the skin, parenchymal tumor may occur in all organs. Parotid gland hemangiomas represent the most frequent vascular tumor of all salivary glands neoplasms. Ultrasound is a very helpfull tool in establishing the diagnosis of parotid gland infantile hemangioma as well as in the follow up of evolution durring treatment.

Keywords: child, chemical burn, accident, chemical agent

INTRODUCERE

Hemangioamele infantile reprezintă patologia tumorală benignă cel mai frecvent întâlnită la copii. Incidența acestei patologii este descrisă în literatura de specialitate ca fiind cuprinsă în-

tre 4% și 10% (1-3). Evoluția naturală a hemangioamelor infantile este marcată de existența a doua faze principale, și anume: faza rapid proliferativă, ce se realizează imediat postnatal și în care are loc creșterea masivă a tumorilor vasculare, și faza lent involutivă, ce se poate întinde

Autor de corespondență:

Ioana Florentina Codreanu, Bulevardul Lacul Tei nr. 120, sector 2, București
E-mail: dr.ioanacodreanu@gmail.com

pe o perioadă de mai mulți ani și în care are loc regresia leziunilor vasculare (4). Deși sunt tumori benigne și cu caracter autolimitant, majoritatea hemangioamelor infantile nenesitănd tratament, ci doar urmărire activă, unele hemangioame pot prezenta caracteristici care impun inițierea tratamentului, uneori chiar în urgență.

Tumorile situate la nivelul glandelor salivare sunt rar întâlnite la copii și, dintre acestea, cele mai frecvente tumori sunt reprezentate de hemangioamele infantile cu localizare la nivelul glandei parotide. Clinica hemangioamelor parotidiene este reprezentată de prezența unei mase tumorale situate la nivelul uneia dintre lojele parotidiene, care poate sau nu să fie prezentă de la naștere și care prezintă creștere rapidă în primele săptămâni-luni postnatal. Diagnosticul hemangioamelor infantile utilizează, pe lângă aspectul clinic al acestei patologii, metode imagistice, rar fiind necesare metode suplimentare invazive, de tipul biopsiei.

Articolul de față își propune prezentarea a două cazuri de leziuni tumorale parotidiene, diagnosticate și urmărite pe parcursul tratamentului utilizând ultrasonografia.

PREZENTĂRI DE CAZ

Cazul 1

Sugar de sex masculin, în vârstă de 3 luni și 3 săptămâni, născut la termen și normoponderal, prezintă la nivelul hemifetei stângi, în dreptul lojei parotidiene, o formațiune tumorală de fer-

mitate medie, cu leziuni teleangiectatice situate la nivelul tegumentului supraiacent. Ecografia realizată la nivelul leziunii descrise identifică prezența unei mase rotund ovalare, cu diametru de 39,8/19 mm, cu ecogenitate neomogenă, aspect multilobular, cu 2 vase nutritive situate în regiunea profundă, cu viteză de 49 m/s în vasul arterial, semnal Doppler prezent și abundent în interior, imagine sugestivă pentru hemangiom infantil (Fig. 1- A).

Cazul 2

Sugar de sex feminin, în vârstă de 9 săptămâni, prezintă o creștere la nivelul lojei parotidiene stângi, cu aspect tumoral, leziune observată de părinți cu 3 săptămâni anterior prezentării. Ultrasonografia realizată la nivelul leziunii identifică prezența unei zone rotund ovalare, cu ecogenitate de tip tisular și aspect multiseptat, cu diametru de 38,4/22 mm, semnal Doppler prezent în interior, abundent, cu multiple ramificații și cu 2 vase nutritive vizibile în porțiunea profundă cu diametrul de 3-3,5 mm, aspect ultrasonografic sugestiv de hemangiom (Fig. 1-B).

Având în vedere aspectul atât clinic, cât și imagistic, înalt sugestive pentru hemangioamele infantile, nu au fost indicate metode suplimentare de diagnostic.

În ambele cazuri, sugarii au primit tratament cu propranolol oral, cu inițiere în spital, sub strictă monitorizare cardiovasculară, durata tratamentului fiind de 7,5 și, respectiv, 8,5 luni. Pe toată durata tratamentului, au fost realizate ultrasonografii seriate, permițând astfel aprecie-

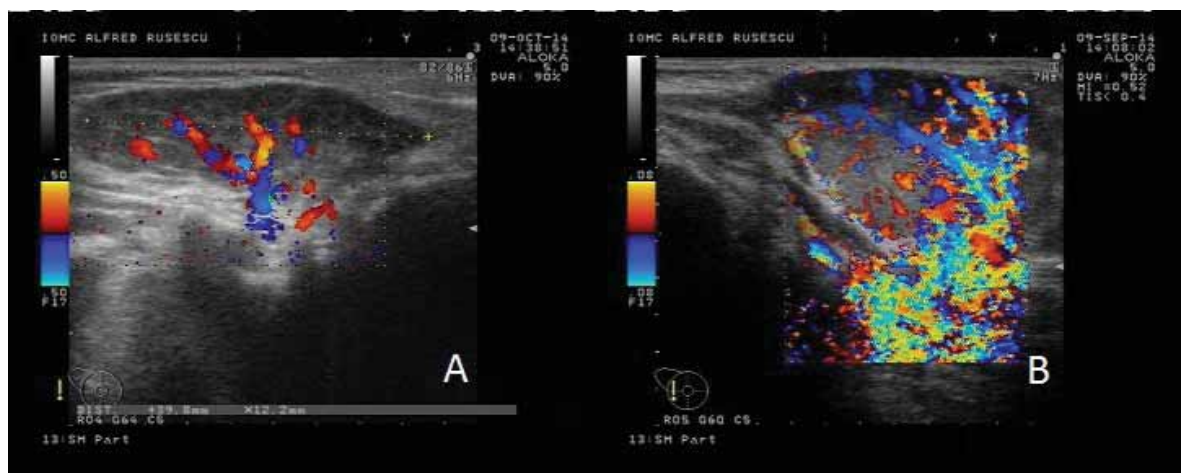


FIGURA 1. A) Caz 1 – Ecografie realizată la nivelul glandei parotide stângi, ce identifică o masă rotund ovalară, cu diametru de 39,8/19 mm, cu ecogenitate neomogenă, aspect multilobular, semnal Doppler prezent și abundent în interior, cu 2 vase nutritive situate în regiunea profundă. Diagnostic ecografic de hemangiom infantil parotidian B) CAZ 2 – Ecografie lojă parotidiană stângă – formațiune tumorală rotund ovalară, ecogenitate neomogenă, multiseptată, cu diametru de 38,4/22 mm, semnal Doppler prezent în interior, abundent, cu multiple ramificații și cu 2 vase nutritive vizibile în porțiunea profundă cu diametrul de 3-3,5 mm. Aspect ultrasonografic sugestiv de hemangiom



FIGURA 2. Caz 2 – reevaluare ecografică după 8 luni de tratament, se observă reducerea netă în dimensiuni a hemangiomului (săgeată), țesut glandular parotidian perilezional normal constituit

rea obiectivă a evoluției sub tratament. Evoluția a fost excelentă, în ambele cazuri înregistrându-se diminuarea considerabilă a leziunilor prezente (Fig. 2).

DISCUȚII

Hemangioamele infantile cu localizare la nivelul glandelor parotide reprezintă cele mai frecvente tumori benigne ale glandelor salivare. Particularitatea deosebită a hemangioamelor infantile este reprezentată de evoluția naturală a acestora. Astfel, evoluția naturală a hemangioamelor infantile este caracterizată de prezența a două faze principale de dezvoltare, faza rapid proliferativă și faza lent involutivă. Faza proliferativă a hemangioamelor infantile se desfășoară imediat postnatal și este caracterizată prin creșterea rapidă a diametrelor tumorilor vasculare datorată proliferării celulelor endoteliale. Din punct de vedere histologic, în această etapă se evidențiază prezența capilarelor bine definite, căptușite de celule endoteliale înconjurate de pericite. Hemangioamele infantile ating maximum de dezvoltare în această perioadă, cel mai frecvent acesta situându-se între 5,5 și 7,5 săptămâni postnatal (5). În anumite cazuri, durata fazei proliferative poate dura până la 12 luni, cu creșterea cea mai rapidă desfășurându-se în primele 3 luni postnatal și atingând 80% în primele 5 luni (6). Aceasta se desfășoară frecvent după vârsta de 12 luni, iar ca durată se întinde pe par-

curtul mai multor ani. În timpul involuției se observă aplatizarea leziunilor tumorale și reducerea în dimensiuni a acestora, reducere direcționată dinspre centrul lezional.

Din punct de vedere clinic, hemangioamele infantile parotidiene se prezintă ca mase tumorale situate la nivelul uneia dintre lojele parotidiene. Aceste leziuni pot fi prezente sau absente la naștere și, cunoscându-se evoluția naturală a acestora, imediat postnatal, urmează proliferarea celulelor hemangiomatoase cu exprimare clinică ce constă în creșterea rapidă a glandelor parotide. Tegumentul supraiacent hemangioamelor infantile parotidiene poate fi integru sau poate prezenta leziuni teleangiectatice sau chiar hemangioame infantile de tip „strawberry”. De asemenea, hemangioamele infantile parotidiene se pot prezenta ca leziuni solitare sau pot fi asociate cu alte hemangioame infantile cutanate (7,8). Astfel, în fața unei creșteri cu aspect tumoral dezvoltate la nivelul unei dintre glandele parotide, mai ales dacă această leziune se dezvoltă imediat în perioada postnatală, medicul clinician trebuie să ridice suspiciunea unui hemangiom infantil parotidian. Diagnosticul presupune recunoașterea aspectului clinic, urmat de realizarea studiilor imagistice. Ultrasonografia parotidelor reprezintă cea mai simplă, ieftină și, mai ales, noninvazivă metodă de diagnostic utilizată în diagnosticul hemangioamelor infantile parotidiene. Aspectul ultrasonografic, în scară gri, cel mai frecvent descris este acela de

leziuni tumorale neomogene, cu aspect lobular, bine conturat, cu ecogenitate de tip tisular, ce înlocuiește țesutul glandular normal, dar cu păstrarea formei. Interogarea Doppler și Power Doppler la nivelul leziunilor identifică prezența abundentă a vaselor atât de tip arterial, cât și cele de tip venos. Diagnosticul fiind cel mai des confirmat ultrasonografic și doar în cazuri rare cu efectuarea imagisticii, utilizând rezonanța magnetică sau computer tomografia, este necesar. În diagnosticul diferențial al hemangioamelor infantile parotidiene intră o serie de patologii cu aspecte clinice asemănătoare, și anume: malformațiile chistice limfatice (higromul chistic), fibrosarcomul congenital, rhabdomyosarcomul și sialoblastomul, diferențierea realizându-se pe baza evoluției și a aspectului imagistic (9,10).

Abordarea terapeutică a hemangioamelor infantile parotidiene constă în mai multe opțiuni de tratament: abordare observațional expectativă fără intervenție terapeutică, tratament cu blocați betaadrenergici (propranolol), corticosteroizi intralezionali și sistemici, interferon alfa, vincristină, bleomicină și sancțiunea chirurgicală. Descoperit întâmplător în anul 2008, propranololul a devenit tratamentul de primă linie în abordarea terapeutică a hemangioamelor infantile (atât cutanate, cât viscerale), inclusiv cele parotidiene (11). Mecanismul de acțiune al propranololului asupra hemangioamelor infantile nu este complet elucidat. O serie de mecanisme de acțiune ce determină involuția hemangioamelor infantile sub acțiunea propranololului au fost propuse, și anume: vasoconstricția, inhibiția angiogenezei prin supresia VEGF-A și IL-6, reglarea sistemului renină angiotensină, inhibiția producției de oxid nitric și inducerea apoptozei. Anterior etapei de inițiere a tratamentului, se recomandă efectuarea riguroasă a examenului fizic, anamneza completă, determinarea frecvenței cardiace, a presiunii arteriale, efectuarea electrocardiografiei pentru excluderea patologiei cardiace artimice (bloc atrio-ventricular mai mare de grad I) și investigații paraclinice biologice uzuale. Dozele se situează între 1 și 3 mg/kgcorp/zi, administrat oral, în timpul mesei, pentru scăderea riscului de hipoglicemie, și trebuie ajustate concomitent cu creșterea în greutate a sugarului. Cele mai frecvente efecte adverse înregistrate pe perioada tratamentului cu propranolol sunt reprezentate de hipotensiune, bradicardie, bronhospasm, hipoglicemie, motiv pentru care se indică monito-

rizarea parametrilor cardiovasculari – frecvență cardiacă și presiune arterială, atât pe perioada de inițiere, cât și pe toată durata tratamentului – și a glucozei serice (4). Eficacitatea și siguranța propranololului sunt unanim descrise și acceptate în literatura de specialitate, cu rate de succes superioare celorlalte opțiuni terapeutice și cu efecte adverse scăzute.

În contrast cu hemangioamele infantile strict tegumentare, unde monitorizarea evoluției sub tratament poate fi realizată clinic, fără alte metode paraclinice suplimentare, în cazul hemangioamelor infantile parotidiene, efectuarea ecografiilor seriate, în dinamică, se impune, cu determinarea atât a dimensiunilor, cât și a vascularizației acestora. Astfel, pe lângă rolul diagnostic, ultrasonografia glandelor parotide reprezintă metoda ideală și noninvazivă necesară aprecierii evoluției sub tratament a hemangioamelor infantile dezvoltate la acest nivel.

CONCLUZII

Hemangioamele infantile situate la nivelul glandelor parotide reprezintă patologia tumorală a glandelor salivare cel mai frecvent întâlnită la copii. Aspectul clinic înalt sugestiv este reprezentat de o masă tumorală rapid progresivă ce se dezvoltă la nivelul uneia dintre lojele parotidiene, leziune cu dezvoltare la câteva săptămâni-luni postnatal. La acești pacienți, realizarea ecografiei utilizând transductori cu frecvență înaltă reprezintă metoda imagistică de primă intenție a fi utilizată pentru susținerea diagnosticului. Aspectul ultrasonografic al hemangioamelor infantile parotidiene este reprezentat de mase tumorale neomogene, septate și bine definite, care înlocuiesc țesutul parotidian normal, dar fără deformarea glandei. Vascularizația identificată la nivelul leziunilor hemangioma-toase prin interogarea Doppler este abundentă, fiind reprezentată atât de artere, cât și de vene. Deși există mai multe metode terapeutice de tratament al hemangioamelor parotidiene, administrarea de propranolol este dovedită a fi sigură și eficientă.

Pe lângă rolul diagnostic, utilizarea ecografiilor în aprecierea evoluției sub tratament a hemangioamelor infantile parotidiene este extrem de utilă, dovedindu-se a fi eficientă și astfel utilizarea altor metode imagistice precum computer tomografia și rezonanța magnetică nefiind necesare.

BIBLIOGRAFIE

1. **Kilcline C., Frieden I.J.** Infantile hemangiomas: How common are they? A systematic review of the medical literature. *Pediatr Dermatol*, 2008, Vol. 25.
2. **Jacobs A.H., Walton R.G.** The incidence of birthmarks in the neonate. *Pediatrics*, Vol. 1976.
3. **Alper J.C., Holmes L.B.** The incidence and significance of birthmarks in a cohort of 4,641 newborns. *Pediatr Dermatol*, 1983, Vol. 1.
4. **David H. Darrow, Arin K. Greene, Anthony J. Mancini, Amy J. Nopper.** Diagnosis and Management of Infantile Hemangioma. *Pediatrics*, 2015, Vol. 136.
5. **Tollefson M.M., Frieden I.J.** Early growth of infantile hemangiomas: What parents' photographs tell us. *Pediatrics*, 2012, Vol. 130.
6. **Metry Denise W.** Infantile hemangiomas: Epidemiology, pathogenesis, clinical features, and complications. *Uptodate*, 2018.
7. **Huchzermeyer P., Birchall M.A., Kendall B. et al.** Parotid haemangiomas in childhood: A case for MRI. *J Laryngol Otol*, 1994, Vol. 108.
8. **Ahuja Derek, J. Roebuck, Anil T.** Hemangioendothelioma of the Parotid Gland in Infants: Sonography and Correlative MR Imaging. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2000, Vol. 21.
9. **Luna M.A., Batsakis J.G., El-Naggar A.K.** Salivary gland tumors in children. *Otol Rhinol Laryngol*, 1999, Vol. 100.
10. **Lee M.J., Cairns R.A., Munk P.L., Poon P.Y.** Congenital-infantile fibrosarcoma: magnetic resonance imaging findings. *Radiol J*, 1996, Vol. 47.
11. **Léauté-Labrèze C., Dumas de la Roque E., Hubiche T., Boralevi F., Thambo J.B., Taïeb A.** Propranolol for severe hemangiomas of infancy. *N Engl J Med.*, 2008, Vol. 1