

(54)

Obustronny naczyniak naczyniówki – opis przypadku

Bilateral choroidal hemangioma – case report

Joanna Dolar-Szczasny, Anna Święch-Zubilewicz, Jerzy Mackiewicz

Klinika Chirurgii Siatkówki i Ciała Szklonego Uniwersytetu Medycznego w Lublinie
Kierownik: dr hab. n. med. Jerzy Mackiewicz

| | |
|------------------------|---|
| Streszczenie: | <p>Wstęp: ograniczony naczyniak naczyniówki jest łagodnym guzem naczyniowym, któremu towarzyszą wtórne zmiany w warstwie nabłonka barwnikowego siatkówki (retinal pigment epithelium – RPE). Obecne mogą być również inne postacie zwyrodnienia zewnętrznych warstw siatkówki, które leżą nad naczyniakiem.</p> <p>Opis przypadku: chory (lat 32) został skierowany do naszej kliniki z powodu pogorszenia widzenia obojga oczu. Badanie refrakcji wykazało krótkowzroczność (OP: -3,00 D, OL: -2,50 D). Najlepiej skorygowana ostrość wzroku wynosiła: w oku prawym 0,2, w oku lewym 0,4. Badanie dna oka wykazało zmiany w RPE oraz czerwono-pomarańczowy wygląd okolicy plamki. Wykonano badania angiografii fluoresceinowej (fluorescein angiography – FA) i USG gałki ocznej, wykazały one zmiany typowe dla naczyniaka naczyniówki w obojgu oczach. Badanie spektralnej koherentnej tomografii optycznej (Spectral Domain Optical Coherence Tomography – SD-OCT) uwidoczniło ultrastrukturalne zmiany w warstwach siatkówki zlokalizowane nad obszarem uwypuklenia naczyniówki.</p> <p>Wnioski: obustronny naczyniak naczyniówki występuje niezwykle rzadko. Najlepszą metodą obrazowania wtórnych zmian w plamce, towarzyszących naczyniakom naczyniówki jest SD-OCT.</p> |
| Słowa kluczowe: | naczyniak naczyniówki, optyczna koherentna tomografia (OCT), makulopatia. |
| Summary: | <p>Purpose: The aim of this paper is to present very rare case of bilateral circumscribed choroidal hemangioma localized in the macular region and accompanied by maculopathy, confirmed by using OCT.</p> <p>Material and methods: 32 years old patient referred to our clinic with deterioration of visual acuity in both eyes. Refraction test showed mild myopia (RE: -3.00 D, LE: -2.50 D). Best corrected visual acuity of his right eye was 0.2 and left eye 0.4. Ophthalmoscopic examination revealed orange-reddish lesion in macular region with disturbances of retinal pigment epithelium (RPE). Fluorescein angiography and ultrasonography confirmed diagnosis of circumscribed choroidal hemangioma in macular region. SD-OCT showed ultrastructural changes in external layers of the retina overlying the tumor.</p> <p>Conclusions: Bilateral choroidal hemangioma is extremely rare. Maculopathy secondary to choroidal hemangioma is best visualized by SD-OCT.</p> |
| Key words: | choroidal hemangioma, optical coherent tomography (OCT), maculopathy. |

Wstęp

Ograniczony naczyniak naczyniówki jest rzadko występującą i łagodną zmianą o charakterze *hamartoma*. Zmiana prawdopodobnie jest obecna od urodzenia, ale przez lata może pozostawać bezobjawowa. Większość guzów wykazuje stabilny przebieg, a niektóre cechuje powolny wzrost. Zmiana lokalizuje się z reguły w obszarze plamki lub okołotarczowo (1). Pierwsze objawy z reguły mają związek z powikłaniami w postaci wtórnego zwyrodnienia torbielowatego siatkówki nad guzem, wysiękowego odwarstwienia siatkówki, zwyrodnienia nabłonka barwnikowego siatkówki (retinal pigment epithelium – RPE) lub włóknienia podsiatkówkowego (2-3).

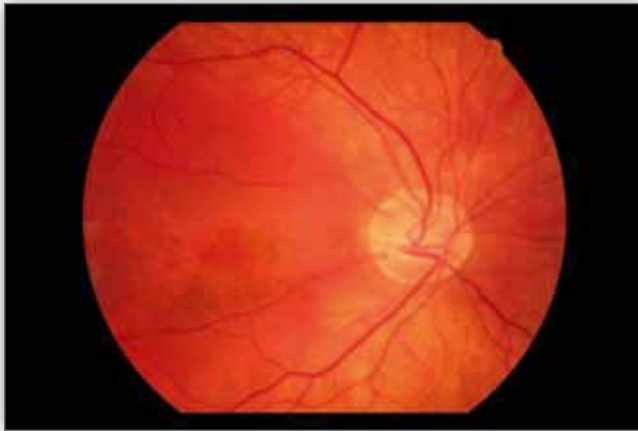
Cel

Celem pracy jest przedstawienie rzadkiego przypadku obustronnie występującego ograniczonego naczyniaka naczyniówki oraz towarzyszącego mu subklinicznego odwarstwienia siatkówki,

które obserwowane było za pomocą optycznej koherentnej tomografii komputerowej (optical coherence tomography – OCT).

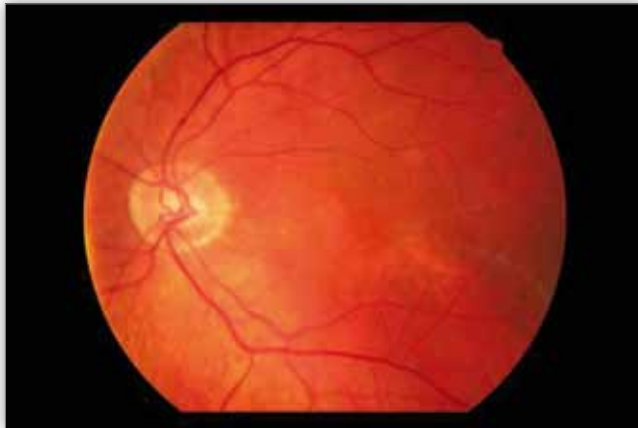
Opis przypadku

Chory (lat 32) został skierowany do naszej kliniki z powodu pogorszenia ostrości wzroku w obojgu oczach. Badanie refrakcji wykazało krótkowzroczność: w oku prawym -3,00 D, w oku lewym -2,50 D. Najlepsza skorygowana ostrość wzroku (best corrected visual acuity – BCVA) wynosiła: w oku prawym 0,2, w oku lewym 0,4. Ostrość wzroku do blizy wynosiła: w oku prawym 1,00, w oku lewym 0,75. Badanie w lampie szczelinowej wykazało brak zmian patologicznych w przednim odcinku obojga oczu. Ciśnienie wewnątrzgałkowe (intraocular pressure – IOP) wynosiło: w oku prawym 17 mmHg, w oku lewym 18 mmHg. Badanie oftalmoskopowe dna oka ujawniło pomarańczowoczerwony obszar w plamkach obojga oczu z towarzyszącymi przegrupowaniami barwnika w RPE (ryc. 1., 2.).



Ryc. 1. Kolorowe zdjęcie dna oka prawego z widocznym pomarańczowoczerwonym płaskim naczyniakiem w centralnej części plamki.

Fig. 1. Color fundus photograph of the right eye presenting flat reddish orange hemangioma in the central macular region.



Ryc. 2. Kolorowe zdjęcie dna oka lewego z widocznym pomarańczowoczerwonym płaskim naczyniakiem w centralnej części plamki.

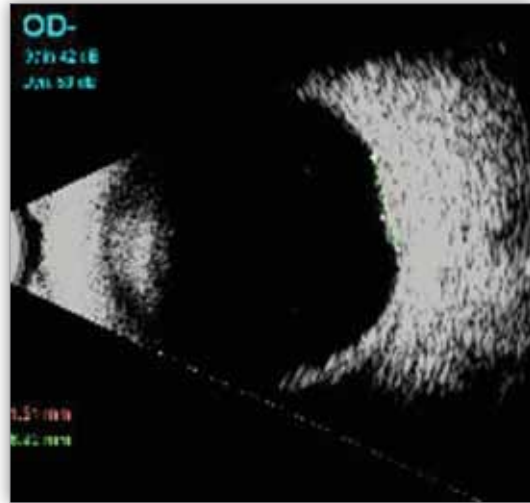
Fig. 2. Color fundus photograph of the left eye presenting flat reddish orange hemangioma in the central macular region.

Wykonano badanie ultrasonograficzne obojga oczu, wykazało ono płaską zmianę w tylnym biegunie, która charakteryzowała się wysoką wewnętrzną reflektywnością bez cienia akustycznego w obrębie oczodołu. W badaniu USG grubość zmiany wynosiła odpowiednio: w oku prawym 1,51 mm, w oku lewym 1,12 mm, wymiar podstawy zmiany natomiast: w oku prawym – 8,42 mm, w oku lewym – 8,28 mm (ryc. 3., 4.).

Wykonano badanie angiografii fluoresceinowej (fluorescein angiography – FA), które uwidocznilo wczesną hiperfluorescencję w obszarze plamki utrzymującą się do późnych faz badania (ryc. 5., 6.). Przyczyną tego stanu są prawdopodobnie atrofia i utrata pigmentu w warstwie nabłonka barwnikowego siatkówki, leżącej nad naczyniakiem.

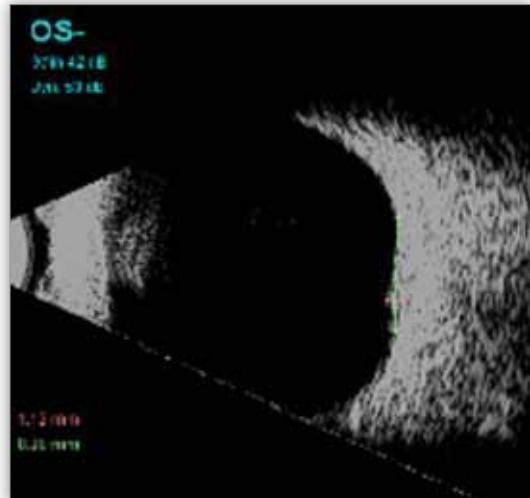
Jednocześnie wykonano badanie angiografii z zielonią indocyjaninową (indocyanine green angiography – ICG) – w jego początkowych fazach ujawniła się intensywna hiperfluorescencja w rejonie plamki, w późnych fazach natomiast zaobserwowano obszary „wypłukania” barwnika. W obu badaniach nie stwierdzono przecieku kontrastu w obrębie siatkówki (ryc. 7., 8.).

W badaniu OCT uwidoczniono ultrastrukturalne zmiany w siatkówce zlokalizowane nad obszarem naczyniaka naczy-



Ryc. 3. Badanie USG w projekcji B oka prawego – obraz ukazuje płaską zmianę o wysokiej reflektywności i brak cienia akustycznego.

Fig. 3. USG B-scan of the right eye demonstrating flat hemangioma with high reflectivity and lack of acoustic shadow.

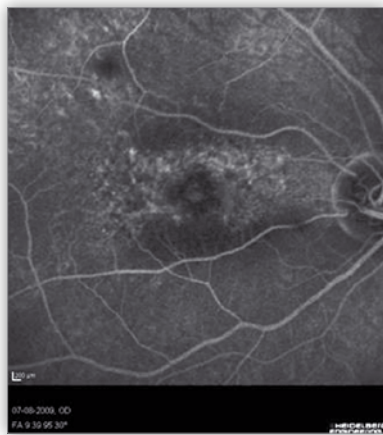


Ryc. 4. Badanie USG w projekcji B oka lewego – obraz ukazuje płaską zmianę o wysokiej reflektywności i brak cienia akustycznego.

Fig. 4. USG B-scan of the left eye demonstrating flat hemangioma with high reflectivity and lack of acoustic shadow.

niówki. Zmiany te dotyczyły głównie warstwy komórek RPE i polegały na częściowym jej zaniku. Dodatkowo w oku prawym w okolicy dołka obecna była niewielka ilość płynu podsiatkówkowego (ryc. 9., 10.).

Ze względu na centralne położenie zmian z zajęciem dołka w obojgu oczach i zaistniałe już zmiany w RPE zdecydowano o poddaniu chorego obserwacji. Po 6 miesiącach obserwacji nie stwierdzono pogorszenia ostrości widzenia – ani subiektywnie, ani obiektywnie. Kontrolne badanie OCT uwidocznilo nieco większe płaskie uniesienie siatkówki sensorycznej w prawym oku oraz pojawienie się podobnych zmian w lewym oku. Skany badania nie uwidocznily cech obrzęku śródsiatkówkowego. Z powodu nieco większej ilości płynu podsiatkówkowego w oku prawym oraz pojawienia się surowiczego odwarstwienia siatkówki w oku lewym choremu zaproponowano terapię iniekcjami doszklitkowymi anty-VEGF. Ze względu na eksperymentalny charakter terapii (lek nie jest zarejestrowany do leczenia tego



Ryc. 5. Obraz badania angiografii fluoresceinowej oka prawego – widoczna hiperfluorescencja typu window defect w obszarze plamki.

Fig. 5. Fluorescein angiography image of the right eye showing window defect changes in the macular area.



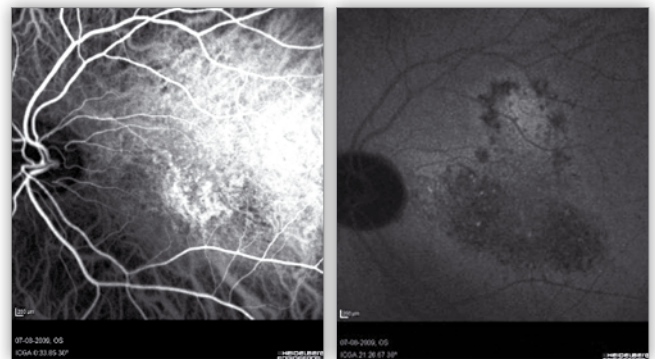
Ryc. 6. Obraz badania angiografii fluoresceinowej oka lewego – widoczna hiperfluorescencja typu window defect w obszarze plamki.

Fig. 6. Fluorescein angiography image of the left eye showing window defect changes in the macular area.



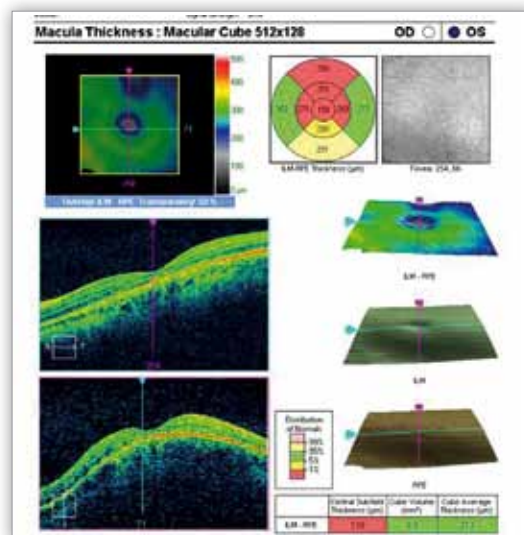
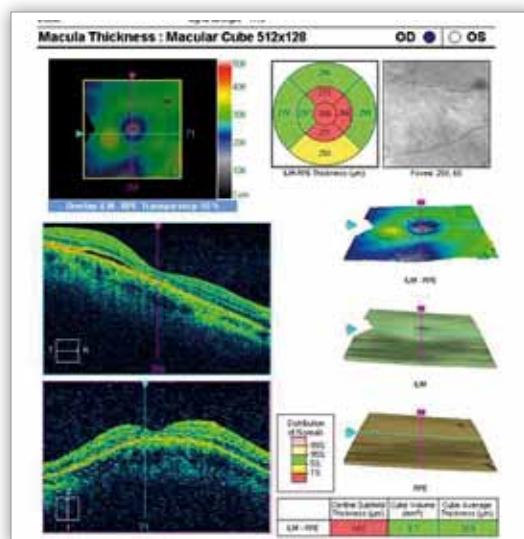
Ryc. 7. Badanie angiografii z zielenią indocyjaninową oka prawego – widoczne hiperfluorescencja w miejscu naczyń i efekt „wypłukania” w fazie późnej.

Fig. 7. Indocyanine green angiography of the right eye presenting hyperfluorescence in the hemangioma region and “washout” effect in the late phase.



Ryc. 8. Badanie angiografii z zielenią indocyjaninową oka lewego – widoczne hiperfluorescencja w miejscu naczyń i efekt „wypłukania” w fazie późnej.

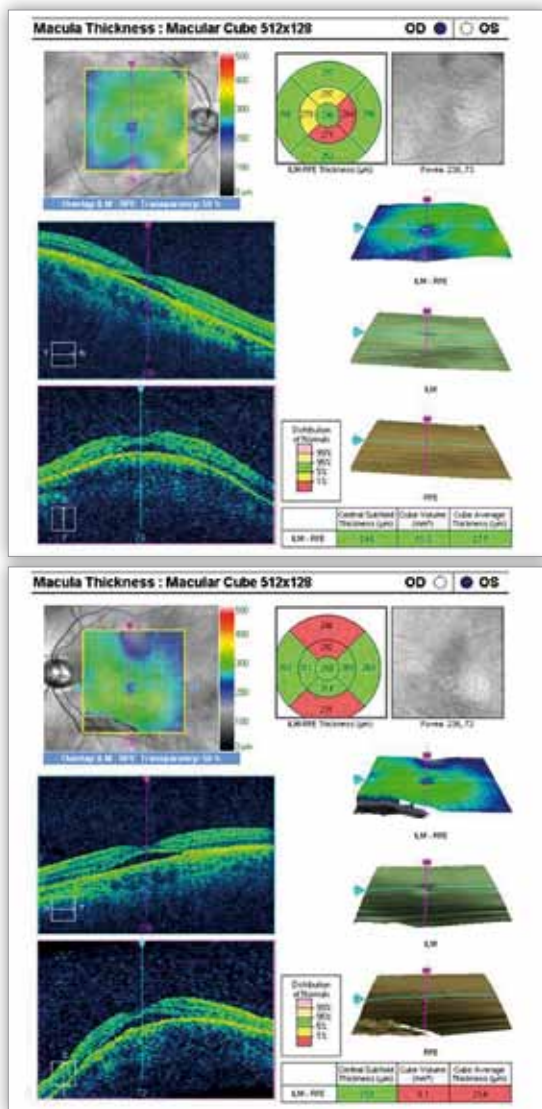
Fig. 8. Indocyanine green angiography of the left eye presenting hyperfluorescence in the hemangioma region and “washout” effect in the late phase.



Ryc. 9. Badanie OCT plamki oka prawego (a) i lewego (b) – widoczne obszary zaniku warstwy RPE w obojgu oczach oraz niewielka ilość płynu podsiatkówkowego w dołku i w części skroniowej plamki w oku prawym.

Fig. 9. OCT of the right (a) and left eye (b) with regions of RPE atrophy in both eyes and slight amount of subretinal fluid in the fovea and temporal macular area.

typu przypadków), jak również na subiektywny brak pogorszenia ostrości widzenia chory nie wyraził zgody na zaproponowane leczenie.



Ryc. 10. Badanie OCT plamki oka prawego (a) i lewego (b) po 6 miesiącach obserwacji – widoczne obszary zaniku warstwy RPE oraz płyn podsiatkówkowy w dołku w obojgu oczach.

Fig. 10. OCT of the right (a) and left eye (b) after 6 months of observation – regions of RPE atrophy in both eyes and slight amount of subretinal fluid in the fovea of both eyes.

Dyskusja

Przedstawiony przypadek ograniczonego naczyniaka naczyniówki jest niezwykle rzadki ze względu na obuoczne wystąpienie zmiany. Z dotychczas opublikowanych doniesień piśmiennictwa nie są nam znane opisy przypadków obustronnie występujących naczyniaków naczyniówki. Pozostałe cechy występujące w obojgu oczach i ujawnione w badaniach dodatkowych są typowe dla tego schorzenia.

O rodzaju zastosowanego leczenia naczyniaków naczyniówki decydują: lokalizacja zmiany, towarzyszące objawy oraz potencjalna korzyść w postaci poprawy ostrości wzroku. Obecnie stosowane metody leczenia naczyniaka naczyniówki obejmują laseroterapię, radioterapię, termoterapię przezręczniczną (TTT) oraz terapię fotodynamiczną. W większości przypadków to leczenie charakteryzują dosyć wysoki procent jatrogenności oraz duży współczynnik nawrotu choroby. Istnieją także pojedyncze doniesienia nt. stosowania terapii anty-VEGF z dobrym efektem

zarówno anatomicznym, jak i funkcjonalnym. Po zastosowaniu tego typu terapii obserwowano poprawę ostrości wzroku, a także wchłonięcie się płynu podsiatkówkowego. Poprawa była stabilna w 6- i 12-miesięcznych okresach obserwacji po zastosowaniu jednej lub dwóch iniekcji bevacizumabu w odstępach 6 tygodni (4-6).

W przypadku opisywanym powyżej dyskusyjną kwestią pozostaje decyzja o wdrożeniu leczenia. Dane z piśmiennictwa sugerują, że powinno się rozważyć terapię, kiedy występuje płyn podsiatkówkowy. U naszego chorego ilość płynu pod siatkówką jest minimalna i niewidoczna ani w badaniu klinicznym, ani w badaniu USG, a wykrywalna jedynie w badaniu OCT. Nie spełnia więc to kryteriów wysiękowego odwarstwienia siatkówki. Dodatkowo zmiana obejmuje dołek i zastosowanie którejkolwiek z uznanych dotychczas metod leczenia wiązałoby się z dużym prawdopodobieństwem pogorszenia funkcji widzenia u chorego. Inaczej jest w przypadku zmian pozadołkowych, które dobrze reagują na terapię fotodynamiczną (7-10), czy rozległych naczynek z towarzyszącym wysiękowym odwarstwieniem siatkówki, w ich leczeniu skuteczna może być radioterapia (11-13).

Druga kwestia to istniejące już zaniki w warstwie RPE, nie-ropujące poprawy funkcji oka pomimo zastosowanego leczenia.

Powyżej opisany przypadek pokazuje więc, jak ważne jest badanie SD-OCT, które obrazując zmiany ultrastrukturalne – niewidoczne w badaniach zarówno angiografii fluoresceinowej, jak i ultrasonografii – może być pomocne w podjęciu decyzji o postępowaniu w przypadku naczyniaka naczyniówki.

Piśmiennictwo:

1. Witschel H, Font RL: *Hemangioma of the choroid: A clinicopathologic study of 71 cases and a review of the literature*. *Surv Ophthalmol* 1976, 20, 415-431.
2. Anand R, Augsburger JJ, Shields JA: *Circumscribed choroidal hemangiomas*. *Arch Ophthalmol* 1989, 107, 1338-1342.
3. Augsburger JJ, Shields JA, Moffat KP: *Circumscribed choroidal hemangiomas: Long-term visual prognosis*. *Retina* 1981, 1, 56-61.
4. Mandal S, Naithani P, Venkatesh P, Garg S: *Intravitreal bevacizumab (avastin) for circumscribed choroidal hemangioma*. *Indian J Ophthalmol* 2011, 59(3), 248-251.
5. Sagong M, Lee J, Chang W: *Application of intravitreal bevacizumab for circumscribed choroidal hemangioma*. *Korean J Ophthalmol* 2009, 23(2), 127-131.
6. Shoeibi N, Ahmadi H, Abrishami M, Poorzand H: *Rapid and sustained resolution of serous retinal detachment in Sturge-Weber syndrome after single injection of intravitreal bevacizumab*. *Ocul Immunol Inflamm* 2011, 19(5), 358-360.
7. Kubicka-Trzaska A, Romanowska-Dixon B: *Photodynamic therapy of circumscribed choroidal hemangioma*. *Klin Oczna* 2006, 108(4-6), 209-213.
8. Singh AD, Kaiser PK, Sears JE, Gupta M, Rundle PA, Rennie IG: *Photodynamic therapy of circumscribed choroidal haemangioma*. *Br J Ophthalmol* 2004, 88, 1414-1418.
9. Schmidt-Erfurth UM, Michels S, Kusserow C, Jurkies B, Augustin AJ: *Photodynamic therapy for symptomatic choroidal hemangioma: visual and anatomic results*. *Ophthalmology* 2002 Dec, 109(12), 2284-2294.

10. Boixadera A, García-Arumí J, Martínez-Castillo V, Encinas JL, Elizalde J, Blanco-Mateos G, Caminal J, Capeans C, Armada F, Navea A, Olea JL: *Prospective clinical trial evaluating the efficacy of photodynamic therapy for symptomatic circumscribed choroidal hemangioma*. Ophthalmology 2009 Jan, 116(1), 100-105.
11. Kubicka-Trząska A, Kobylarz J, Romanowska-Dixon B: *Ruthenium-106 plaque therapy for diffuse choroidal hemangioma in sturge-weber syndrome*. Case Rep Ophthalmol Med 2011, 2011, 785686. Epub 2011 Sep 29.
12. Aizman A, Finger PT, Shabto U, Szechter A, Berson A: *Palladium 103 (103Pd) plaque radiation therapy for circumscribed choroidal hemangioma with retinal detachment*. Arch Ophthalmol 2004 Nov, 122(11), 1652-1656.
13. Murthy R, Hanovaz SG, Naik M, Gopi S, Reddy VA: *Ruthenium-106 plaque brachytherapy for the treatment of diffuse choroidal haemangioma in Sturge-Weber syndrome*. Indian J Ophthalmol 2005 Dec, 53(4), 274-275.

Praca wpłynęła do Redakcji 11.06.2012 r. (1386)
Zakwalifikowano do druku 30.09.2012 r.

Adres do korespondencji (Reprint requests to):
dr n. med. Joanna Dolar-Szczasny
Klinika Chirurgii Siatkówki i Ciała Szklistego
Uniwersytetu Medycznego w Lublinie
ul. Chmielna 1
20-079 Lublin
e-mail: joannaszczasny@op.pl

Zapraszamy na naszą stronę internetową
www.okulistyka.com.pl