



Orbital Soliter Fibröz Tümörün 500-700 Mikron Tris-Akril Jelatin Mikrokürelerle Preoperatif Endovasküler Embolizasyonu

Preoperative Endovascular Embolization of Orbital Solitary Fibrous Tumor With 500-700 Micron Tris-Acryl Gelatin Microspheres

© Bülent Yazıcı*, © Bahattin Hakyemez**, © Ömer Ersin Muz***, © Zeynep Yazıcı**, © Ulviye Yalçinkaya****

*Bursa Uludağ Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göz Hastalıkları Anabilim Dalı, Bursa, Türkiye

**Bursa Uludağ Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji Anabilim Dalı, Bursa, Türkiye

***Yunus Emre Devlet Hastanesi, Göz Hastalıkları Kliniği, Eskişehir, Türkiye

****Bursa Uludağ Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, Bursa, Türkiye

Öz

Solid orbital tümörlerin preoperatif embolizasyonu ile ilgili deneyim sınırlıdır. Burada, preoperatif embolizasyon için 500-700 µm tris-akril jelatin mikrokürelerin (TAJM) kullanıldığı, büyük ve yoğun damarlı bir orbital soliter fibröz tümör (SFT) olgusu sunulmaktadır. Kırk bir yaşında erkek hasta sağ orbitada ciddi bir proptozis, ele gelen kitle, hareket kısıtlılığı yaratan miyopati, maruziyet keratopatisi ve kompresif optik nöropati ile başvurdu. Manyetik rezonans görüntüleme palpe edilebilen üst orbitada, 65x35x35 mm çaplı, apekse uzanan, kontrast maddeyle yoğun biçimde boyanan bir tümör ve çoğul tümör içi vasküler akım sinyalleri gösterdi. İnsizyonel biyopsiyle SFT tanısı kondu. Endovasküler tümör embolizasyonu, 500-700 µm TAJM'ler ile yapıldı. İki gün sonra, tümör minimal kanama ile tam olarak çıkartıldı. Ameliyattan sonra 42 aylık izlem sırasında, embolizasyon veya cerrahiye bağlı bir komplikasyon, tümör nüksü veya metastaz gelişmedi.

Anahtar Kelimeler: Orbita, soliter fibröz tümör, cerrahi tedavi, tümör embolizasyonu, tris-akril jelatin mikroküre

Abstract

The reported experience with preoperative embolization of solid orbital tumors is scarce. Herein, we present a case of a large and hypervascular orbital solitary fibrous tumor (SFT) in which 500-700 µm tris-acryl gelatin microspheres (TAGM) were used for preoperative embolization. A 41-year-old man presented with severe proptosis, palpable mass, restrictive myopathy, exposure keratopathy, and compressive optic neuropathy in the right orbit. Magnetic resonance imaging showed a 65x35x35 mm, diffusely contrast-enhanced tumor in the superior orbit, extending to the apex, and multiple intratumoral vascular flow voids. A diagnosis of SFT was made by incisional biopsy. Endovascular tumor embolization was performed with 500-700 µm TAGM. Two days later, the tumor was entirely removed with minimal bleeding. No embolization- or surgery-related complications and tumor recurrence or metastasis developed during the 42-month postoperative follow-up.

Keywords: Orbit, solitary fibrous tumor, surgical treatment, tumor embolization, tris-acryl gelatin microsphere

Yazışma Adresi/Address for Correspondence: Bülent Yazıcı, Bursa Uludağ Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göz Hastalıkları Anabilim Dalı, Bursa, Türkiye

E-posta: byazici@uludag.edu.tr **ORCID-ID:** orcid.org/0000-0001-8889-1933

Geliş Tarihi/Received: 17.02.2022 **Kabul Tarihi/Accepted:** 16.05.2022

Cite this article as: Yazıcı B, Hakyemez B, Muz ÖE, Yazıcı Z, Yalçinkaya U. Preoperative Endovascular Embolization of Orbital Solitary Fibrous Tumor With 500-700 Micron Tris-Acryl Gelatin Microspheres. Turk J Ophthalmol. Turk J Ophthalmol 2022;52:356-359

Giriş

Soliter fibröz tümörler (SFT) orbitada görece seyrektir ve sıklıkla hipervaskülerdir.¹ Orbitanın apeksine ulaşan büyük, hipervasküler SFT'ler cerrahi açıdan ciddi bir zorluk çıkartır. Tümörün apikal-posterior kısmına erişim güçlüğü nedeniyle intraoperatif kanamayı kontrol etmek zor olabilir; tümör sadece kısmen çıkartılabilir ve ciddi postoperatif morbiditeler gelişebilir. Preoperatif endovasküler tümör embolizasyonu solid orbital tümörler için nadir olarak kullanılan bir yöntemdir. Bu yazıda, 500-700 mikron tris-akril jelatin mikroküreler (TAJM) ile embolize edildikten sonra çıkartılan büyük bir orbital SFT sunulmaktadır. Hastanın bilgi ve görüntülerinin yayımlanması için yazılı onam alınmış ve Helsinki Bildirgesi'nin ilkelerine bağlı kalmıştır.

Olgu Sunumu

Kırk bir yaşında erkek hasta, sağ gözünde, 1 yıldır artan proptozis, ağrı ve bulanık görme yakınmalarıyla başvurdu (Şekil 1A). Üst-dış orbitada, göz küresini aşağı-ıçe doğru iten, sert, hareketsiz bir kitle palpe edildi. Üst göz kapağında geniş, deri altı damarlar vardı. Eksternal göz hareketleri her yönde kısıtlıydı ve afferent pupil defekti vardı. Görme keskinliği sağ gözde 2 metreden parmak sayma düzeyinde, sol gözde 20/20 idi. Sağ gözde maruziyet keratopatisi, diffüz optik disk ödemi ve koroidal katlantılar vardı.

Manyetik rezonans görüntüleme, sağ orbitada, arka orbitayı dolduran (ekstra- ve intrakonal), iyi sınırlı, lobüler konturlu, büyük bir yumuşak doku kitlesi (65x35x35 mm) gösterdi.

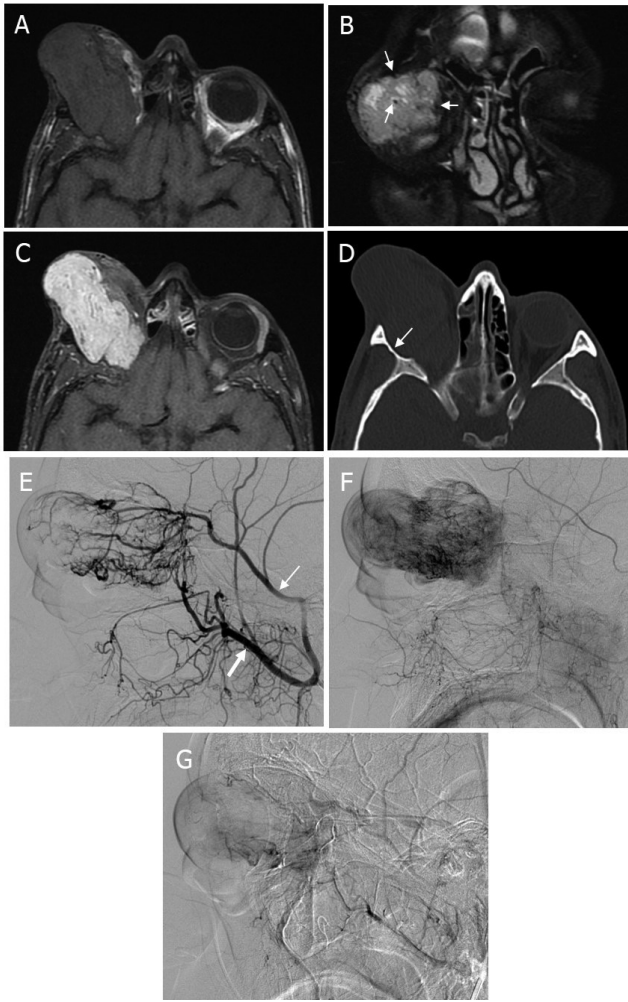
Lezyon T1- ve T2- ağırlıklı görüntülerde gri cevher ile izointenst ve T1- ağırlıklı kontrastlı görüntülerde yoğun bir boyanma gösterdi (Şekil 2A-C). Lezyon içinde ve komşuluğunda, çok sayıda, damarsal akımı temsil eden sinyalsiz ("signal void") alanlar görüldü (Şekil 2B). Bilgisayarlı tomografide komşu orbital kemik duvarlarında, ekspansil yeniden şekillenme gözlemlendi (Şekil 2D). İnsizyonel biyopsi kitlenin CD34 ve STAT6 ile kuvvetli immünreaktivite gösteren bir ekstarplevral SFT olduğunu ortaya koydu. Işık mikroskobu sarmallar halinde, uniform oval veya iğsi hücreler gösterdi. Mitotik aktivite, nekroz veya hücrel atipiden yoksun, tipik paternsiz bir patern izlendi (Şekil 3).

Hasta intravenöz sedasyon altındayken, 500-700 µm TAJM (Embosphere, Merit Medical Systems Inc., Utah, ABD) kullanılarak tümör embolizasyonu yapıldı. Femoral arter yoluyla karotis anjiyografi, sağ eksternal karotis arterin internal maksiller ve orta meningeal dallarından beslenen, hipervasküler bir kitle gösterdi (Şekil 2E, F). Her iki besleyici arter mikrokılavuz tel (Hybrid, Balt, Montmorency, Fransa) ve Rebar mikrokaterlerle (Medtronic, Irvine ABD) kateterize edildi. Kontrast madde ve mikroküre partikül karışımı, floroskopik kontrol altında, kontrast maddenin besleyici arterlerden geçişi durana kadar, yavaşça enjekte edildi (Şekil 2G). İşlemden sonra, intravenöz parasetamole yanıt veren orbital ağrı dışında bir komplikasyon gelişmedi.

Embolizasyondan iki gün sonra, uzatılmış üst göz kapağı kesisiyle, birleşik üst ve lateral orbitotomi yoluyla, tümör tamamen çıkarıldı (Şekil 1B). Lezyon üst orbitada belirgin bir yağ atrofisine neden olmuştu ve psödokapsüllü olmasına rağmen



Şekil 1. Orbital soliter fibröz tümörlü hastanın preoperatif (A), intraoperatif (B ve C) ve postoperatif 28. aydaki (D) fotoğrafları



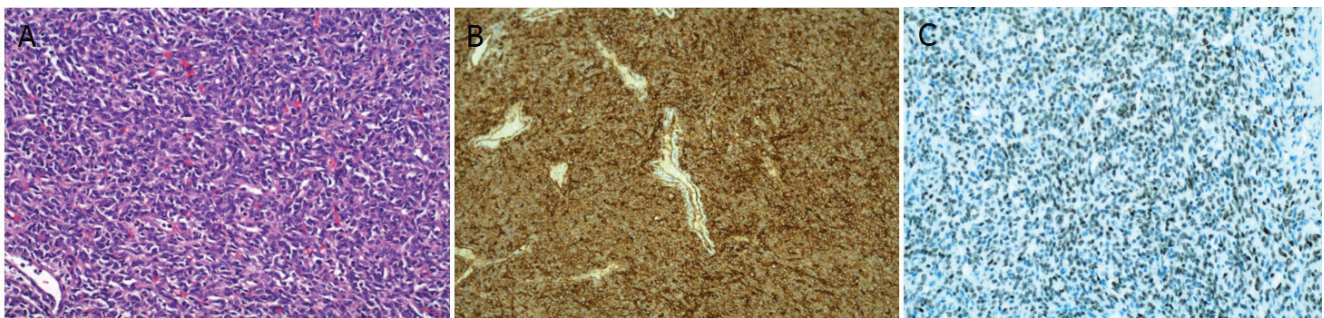
Şekil 2. Manyetik rezonans görüntüleme (A-C) iyi sınırlı, lobüle konturlu, geniş bir yumuşak doku kitlesi gösteriyor. A) Lezyon, aksiyel T1 ağırlıklı görüntülerde gri cevher ile izointenst. B) Çoğul intratümöral, damarsal sinyal yokluğunu (oklar) gösteren koronal yağ baskılı T2 ağırlıklı görüntü. C) Aksiyel kontrastlı yağ baskılı T1 ağırlıklı görüntüde, lezyon kontrast maddeyle yoğun biçimde boyanmaktadır. D) Aksiyel bilgisayarlı tomografi kitlenin etkisiyle lateral orbital duvarın yeniden şekillendiğini (ok) göstermektedir. E) Mikrokaterizasyon anjiyografi internal maksiller (kalın ok) ve orta meningeal (ince ok) arterlerden beslenen büyük ve oldukça hipervasküler bir kitle gösteriyor. F) Geç arteriyel fazda tümörün kontrast tutulumunda güçlü artış. G) Mikroküre partiküllerle embolizasyondan sonra tümörün kontrast tutulumunda belirgin azalma

çevre dokulara sıkıca yapıştı. Tümör kaynaklı kanama ameliyat sırasında kolaylıkla kontrol edilebildi. Tümör çıkartıldıktan sonra, üst ve alt göz kapağı fazlalıkları alındı ve lateral kantüs yeniden oluşturuldu (Şekil 1C). Tümör 42 aylık izlem sırasında nüks etmedi. Son muayenede, üst sulkus çöküntüsü, ptozis ve ekzotropya izlendi (Şekil 1D). Ekstraoküler motilite, hafif yukarı bakış kısıtlılığı dışında, tüm yönlerde normaldi. Sağ gözde görme keskinliği 0,2 düzeyindeydi.

Tartışma

SFT'ler tüm orbita kitlelerinin %1-3'ünü oluşturur ve temel tedavi, cerrahi çıkartımdır.² Tümörüyle çıkartılmazsa, SFT'ler nüks edebilir ve malign dönüşüm gösterebilir. Bu komplikasyonların, orbital olguların, sırasıyla, %37 ve %12'sinde görüldüğü ve uzun yıllar sonra kendini gösterdiği bildirilmiştir.^{3,4} Tümör çapı (>3 cm) lokal nüks ve uzak metastaz açısından önemli bir risk faktörü olabilir.⁵ Orbitanın apeksine uzanan büyük SFT'ler, tümör pedikülüne erişmekteki güçlük nedeniyle, kanama ve tümörün tam çıkartılamamasıyla komplike olabilir. Preoperatif embolizasyon, tümör boyutunu, cerrahi kanamayı ve ameliyat süresini azaltabilir. Embolizasyon için sıvı, partiküller veya sarmallar kullanılabilir. Her bir materyalin, onu belli endikasyonlar için avantajlı hale getiren fiziksel özellikleri vardır.⁶

Sıvı embolizan ajanlar, tipik olarak, anevrizmalar, arteriyovenöz malformasyonlar ve arteriyovenöz fistüllerde kullanılırken, sarmallar büyük damarların oklüzyonu için tercih edilir.^{6,7} Partikül embolizanlar (polivinil alkol veya TAJM) en sık tümörler için kullanılır. TAJM özellikle uterus ve prostat tümörleri için onay almıştır. Bu partiküller, esnek, küçülebilir olmaları ve topaklaşmamaları nedeniyle, maksimum çaplarından daha küçük mikrokaterlerle enjekte edilebilir. Kateter ağzı veya çevresinde tıkanma ve yapışmaya neden olmazlar. Diğer embolizan ajanlar kateterden çıktıkları yerde damar tıkanıklığına neden oldukları halde, mikroküresel partiküller daha derine nüfuz edebilirler. Bu fiziksel özellikleri dolayısıyla, TAJM polivinil alkolle tercih edilebilir.⁶ TAJM, vasküler endotele yapışır ve şiddetli bir enflamasyon ve dejenerasyona neden olmaksızın, 4 hafta süreyle kalabilir.⁸ Ancak revaskülarizasyon olasılığı nedeniyle, embolizasyondan sonra birkaç gün içinde, cerrahi girişim yapılmalıdır. Embolizan mikroküresel domuz jelatini içerdikleri için alerjik reaksiyona neden olabilir.



Şekil 3. A) Histolojik olarak tümör, uniform biçimde, oval veya iğsi hücrelerden oluşuyordu. Tümör hücrelerinde diffüz CD34 pozitifliği (B) ve nükleer STAT6 ekspresyonu 121 (C) vardı

Preoperatif embolizasyon, orbita solid tümörleri için nadiren kullanılan bir tekniktir. Yakın zamanlı bir derleme, literatürdeki 275 SFT'li hastanın sadece 3'ünde preoperatif embolizasyon yapıldığını saptamıştır.⁵ Bu olgularda embolizasyon için n-bütül-2- siyanoakrilat yapıştırıcı ve etilen vinil alkol kopolimeri (Onyx®) gibi sıvı ajanlar kullanılmıştır.^{9,10,11} Japonca literatürde mekanik sarmalın kullanıldığı başka bir olgu vardır.¹² Yakın zamanda intraoperatif intratümöral enjeksiyon veya preoperatif transoftalmik arter yoluyla Onyx'in kullanıldığı 2 SFT olgusu bildirilmiştir.^{13,14} Tümör, ilk olguda parçalar halinde ("piecemeal") rezeksiyonla, diğer olguda ise enükleasyondan sonra çıkartılmıştır.^{13,14} Partikül ajanla endovasküler tümör embolizasyonu sadece bir SFT olgusunda bildirilmiştir.¹⁵ Bu olguda üst ön-orta orbitadaki bir ekstrakonal SFT distal oftalmik arterden enjekte edilen 150-300 mikron TAJM ile embolize edilmiştir.

Arka orbitadaki büyük ve hipervasküler bir tümörde, tümör içindeki yoğun kollateral anastomozlar nedeniyle, etkili bir devaskülarizasyon için, ideal olarak tüm majör besleyici damarların tıkanması gerekir. Bununla birlikte, embolizasyon işleminin ciddi komplikasyonları olabilir. Yakın zamandaki bir olguda, oftalmik arterin Onyx ile embolizasyonu, kalıcı görme kaybının yanı sıra, ani, aşırı orbital ağrı, şiddetli konjonktival konjesyon ve acil tedavi gerektiren okülökardiyak bradikardiye yol açmıştır.¹⁴ İnterkarotid anastomozlar, hem tümörü hem de normal yapıları besleyen ortak arterler, besleyici damarlarının çapı ve embolizan ajanın ana damara reflü olasılığı, embolizasyon kararı vermeden önce göz önünde bulundurulması gereken faktörlerdir.^{7,16}

TAJM, altı farklı boyut aralığında ("40-120" ile "900-1200" mikron arasında) mevcuttur. Partikül çapının seçimi etkinlik ve komplikasyonlar açısından önemlidir.⁸ Küçük partiküller daha distale, tümörün kapiller yataklarına erişmekle birlikte, kollateral anastomozlar yoluyla tümör dışı dolaşıma da girebilirler.¹⁴ Küçük partiküller (>300 µm) intrakraniyal menenjiyomlarda daha sık komplikasyonlara neden olabilir.¹⁷ Şimdiki olguda, büyük bir orbital SFT, 500-700 mikron çaplı TAJM ile güvenli biçimde embolize edildi ve cerrahi olarak tamamen çıkartılabildi. Solid orbital tümörlerin endovasküler embolizasyonu için, bu ajanı kullanmak uygun olabilir.

Etik

Hasta Onayı: Hasta onamı alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Editörler kurulu dışında olan kişiler tarafından değerlendirilmiştir.

Yazarlık Katkıları

Cerrahi ve Medikal Uygulama: B.Y., B.H., Z.Y., U.Y., Konsept: B.Y., B.H., Dizayn: B.Y., B.H., Veri Toplama veya İşleme: B.Y., B.H., Ö.E.M., Z.Y., U.Y., Analiz veya Yorumlama: B.Y., B.H., Ö.E.M., Z.Y., U.Y., Literatür Arama: B.Y., Ö.E.M., Yazan: B.Y., Ö.E.M., Z.Y.

Çıkar Çatışması: Yazarlar tarafından çıkar çatışması bildirilmemiştir.

Finansal Destek: Yazarlar tarafından finansal destek almadıkları bildirilmiştir.

Kaynaklar

1. Alkatan HM, Alsalamah AK, Almuzel A, Alshomar KM, Maktabi AM, ElKhamary SM, Alkatan HM, Alsalamah AK, Almuzel A, Alshomar KM, Maktabi AM, ElKhamary SM, Eberhart CG, Iuliano A, Lanni V, Strianese D. Orbital solitary fibrous tumors: a multi-centered histopathological and immunohistochemical analysis with radiological description. *Ann Saudi Med.* 2020;40:227-233.
2. Bonavolontà G, Strianese D, Grassi P, Comune C, Tranfa F, Uccello G, Iuliano A. An analysis of 2,480 space-occupying lesions of the orbit from 1976 to 2011. *Ophthalmic Plast Reconstr Surg.* 2013;29:79-86.
3. Blessing NW, Bermudez-Magner JA, Fernandez MP, Rosenberg AE, Dubovy SR, Johnson TE. Solitary fibrous tumor of the orbit: a case series with clinicopathologic correlation and evaluation of STAT6 as a diagnostic marker. *Ophthalmic Plast Reconstr Surg.* 2020;36:164-171.
4. Jackson CH, Hunt BC, Harris GJ. Fate and management of incompletely excised solitary fibrous tumor of the orbit: A case series and literature review. *Ophthalmic Plast Reconstr Surg.* 2021;37:108-117.
5. Thompson LDR, Liou SS, Feldman KA. Orbit solitary fibrous tumor: A proposed risk prediction model based on a case series and comprehensive literature review. *Head Neck Pathol.* 2021;15:138-152.
6. Vaidya S, Tozer KR, Chen J. An overview of embolic agents. *Semin Intervent Radiol.* 2008;25:204-215.
7. Sekhar LN, Biswas A, Hallam D, Kim LJ, Douglas J, Ghodke B. Neuroendovascular management of tumors and vascular malformations of the head and neck. *Neurosurg Clin N Am.* 2009;20:453-485.
8. Doucet J, Kiri L, O'Connell K, Kehoe S, Lewandowski RJ, Liu DM, Abraham RJ, Boyd D. Advances in degradable embolic microspheres: A state of the art review. *J Funct Biomater.* 2018;9:14.
9. Wallace KM, Alaraj A, Aakalu VK, Aletich V, Setabutr P. Endovascular preoperative embolization of orbital hemangiopericytoma with n-butyl cyanoacrylate glue. *Ophthalmic Plast Reconstr Surg.* 2014;30:97-100.
10. Demura M, Hayashi Y, Sasagawa Y, Mohri M, Takahira M, Nakada M. Intraorbital solitary fibrous tumor requiring preoperative embolization of feeding artery. *Asian J Neurosurg.* 2019;14:593-597.
11. Hashemi N, Ling JD, Soparkar C, Sami M, Ellezam B, Klucznik R, Lee AG, Chévez-Barrios P. Transarterial Onyx embolization of an orbital solitary fibrous tumor. *Ocul Oncol Pathol.* 2015;1:98-102.
12. Kishimoto I, Shinohara S, Fujiwara K, Kikuchi M, Tona R, Kanazawa Y, Harada H, Naito Y, Usami Y. [A case of intraorbital solitary fibrous tumor resected successfully with preoperative arterial embolization]. *Nihon Jibiinkoka Gakkai Kaiho.* 2014;117:1477-1482.
13. Vijitha VS, Kapoor AG, Mittal R, Vangara R. Preoperative embolisation of orbital solitary fibrous tumour. *BMJ Case Rep.* 2020;22;13:e235576.
14. Wang X, Shen J, Cui H, Pan J, Teng X, Yan M, Feng S, Ding W. Preoperative transarterial embolization of a recurrent orbital solitary fibrous tumor with significant hypervascularity: a case report. *BMC Surg.* 2021;21:92.
15. Jeeva I, Chang BY, Bagdonaite L, Kalantzis G, Fearnley TE, Ismail A, Patankar T, Goddard T. Treatment of orbital haemangiopericytoma with surgery and preoperative embolization. *Eye (Lond).* 2013;27:283-284.
16. Duffey EJ, Gandhi CD, Prestigiacomo CJ, Abruzzo T, Albuquerque F, Bulsara KR, Derdeyn CP, Fraser JF, Hirsch JA, Hussain MS, Do HM, Jayaraman MV, Meyers PM, Narayanan S; Society for Neurointerventional Surgery. Head, neck, and brain tumor embolization guidelines. *J Neurointerv Surg.* 2012;4:251-255.
17. Sluzewski M, van Rooij WJ, Lohle PN, Beute GN, Peluso JP. Embolization of meningiomas: comparison of safety between calibrated microspheres and polyvinyl-alcohol particles as embolic agents. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2013;34:727-729.