

ABSTRACT

BAGGRUND – Intravaskulær papillær endotel hyperplasi (IPEH) er en forholdsvis sjælden benign vaskulær tumor karakteriseret ved øget proliferation af endotelceller i blodkarrene. Tumoren optræder almindeligvis på ekstremiteterne og ses sjældent i mundhulen. Tumoren kan forekomme i alle aldre, men ses hyppigst hos midaldrende kvinder. IPEH præsenterer sig som en fast, asymptomatisk og langsomtvoksende blålig læsion, som er forholdsvis velafgrænset og eleveret fra omliggende væv. Histologisk karakteriseres tumoren ved et dilateret blodkar indeholdende en reorganiseret og rekanaliseret trombe beklædt med prolifererende endotelceller. Intravaskulær papillær endotel hyperplasi behandles almindeligvis med kirurgisk excision, og recidivfrekvensen er lav.

PATIENTTILFÆLDE – En 74-årig kvinde blev henvist til Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, for diagnostik og behandling af en asymptomatisk blålig hævelse i overlæben, som var generende ved tale og tygning. Den tentative diagnose var hæmangiom. Hævelsen blev excideret, og histologisk undersøgelse viste intravaskulær papillær endotel hyperplasi. Det postoperative forløb var komplikationsfrit, og patienten blev afsluttet til videre kontrol hos egen tandlæge.

KONKLUSION – Bioptering eller kirurgisk excision af vaskulære tumorer i mundhulen er forbundet med betydelig blødningsrisiko. Valg af relevant behandling afhænger således af patientens gener, differentialdiagnostiske overvejelser samt størrelse og lokalisation af tumoren.

EMNEORD Biopsy | hæmangioma | lip | neoplasms | vascular malformations.



Korrespondanceansvarlig førsteforfatter:

ÖZLEM KESMEZ

oezlemky.oms@gmail.com

Intravaskulær papillær endotel hyperplasi – en sjælden forekommende vaskulær tumor

ÖZLEM KESMEZ, uddannelsestandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital

JULIA DENISE MIDTGAARD HAAHR, læge, Patologisk Institut, Aalborg Universitetshospital

THOMAS STARCH-JENSEN, klinisk professor, overtandlæge, specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, postgraduat klinisk lektor, ph.d., Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, og Klinisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Aalborg Universitet

► Accepteret til publikationen 14. februar 2023

Tandlægebladet 2023;127:514-8

INTRAVASKULÆR PAPILLÆR ENDOTEL HYPERPLASI (IPEH) er en forholdsvis sjælden benign vaskulær tumor karakteriseret ved øget proliferation af endotelceller i blodkarrene og udgør ca. 2 % af de vaskulære tumorer (1,2). Tumoren blev for første gang beskrevet af Masson i 1923 og kendes ligeledes under navnet Massons tumor (1). IPEH forekommer hyppigst på ekstremiteterne og sjældent i mundhulen, hvor den tidligere er beskrevet på tungen, læberne og i kindslimhinden (3,4). Tumoren kan optræde i alle aldre, men ses hyppigst hos midaldrende kvinder (5,6). Ætiologien og patogenesen er ukendt (7). Imidlertid beskrives IPEH ofte som en reaktiv proces og således ikke en neoplastisk forandring, idet endotelcelleproliferationen antages at være forårsaget af et tidligere traume, som har medført skade på blodkarret med trombedannelse, venøs insufficiens og betændelse (1,8).

IPEH kendetegnes klinisk ved en fast, asymptomatisk og langsomtvoksende blålig misfarvning, som er forholdsvis velafgrænset og let eleveret fra det omliggende væv (9). Histologisk karakteriseres tumoren ved et dilateret blodkar, indeholdende en reorganiseret og rekanaliseret trombe, der er beklædt med prolifererende endotelceller. Blodkarrene indeholder oftest en trombe (blodprop) af varierende størrelse (3). IPEH behandles almindeligvis med kirurgisk excision, og recidivfrekvensen er generelt lav (4).

I nærværende artikel præsenteres en 74-årig kvinde med IPEH i overlæben, og de hyppigste differentialdiagnostiske overvejelser diskuteres.

PATIENTTILFÆLDE

En 74-årig kvinde blev henvist fra egen tandlæge til Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, for diagnostik og behandling af blålig slimhindeforandring i overlæben. Patienten havde gennem en længere periode bemærket en mindre, asymptomatisk og fast blålig hævelse i højre side af overlæben, der igennem de seneste måneder havde medført gener ved tale og tygning. Der var ingen oplysninger om tidligere traume.

Klinisk undersøgelse

Svarende til overgangen mellem overlæbens prolábium og mundslimhinde fandtes en 6 x 6 mm velafgrænset og blålig misfarvning, som var let eleveret fra omliggende slimhinde (Fig. 1). Forandringen var blød i konsistensen og asymptomatisk ved palpation.

Tentativ diagnose og udredning

På baggrund af ovenstående anamnese og kliniske undersøgelser blev der stillet følgende tentative diagnose: Hæmangiom. Til verificering af den tentative diagnose blev der fundet indikation for excisionsbiopsi. Indledningsvis blev der lagt en dybdegående sutur omkring læsionen med henblik på eventuel afklemning af tilførende blodkar, hvis kraftig intraoperativ blødning skulle opstå. Herefter blev der lagt en omkransende incision gennem normalt udseende slimhinde i dybden til underliggende bindevæv. Ved stump dissektion blev tumurvævet løsnet fra det omkringliggende væv med god clivage og sendt til histologisk undersøgelse på Patologisk Institut, Aalborg Universitetshospital. Afslutningsvis blev der foretaget hæmostase, sårtoilette og suturering. Det postoperative forløb var komplikationsfrit, og på baggrund af den histologiske undersøgelse blev patienten afsluttet til videre kontrol hos egen tandlæge.

Klinisk billede af intravaskulær papillær endotel hyperplasi



Fig. 1. IPEH i overlæben. Tumoren fremtræder blålig, velafgrænset og let eleveret i forhold til omliggende slimhinde.

Fig. 1. IPEH in the upper lip. The tumour appears bluish, well-defined and slightly elevated compared with the adjacent mucosa.

Histologisk undersøgelse

Det histologiske præparat bestod af mundslimhinde med fokal parakeratiniseret flerlaget pladeepitel uden atypi. I underliggende bindevæv fandtes dilateret blodkar med organiseret og rekanaliseret trombe i form af papillær endotel hyperplasi. Der var ingen tegn på dysplasi eller malignitet. Det histologiske billede var således foreneligt med en IPEH (Fig. 2).

Histologisk billede af intravaskulær papillær endotel hyperplasi

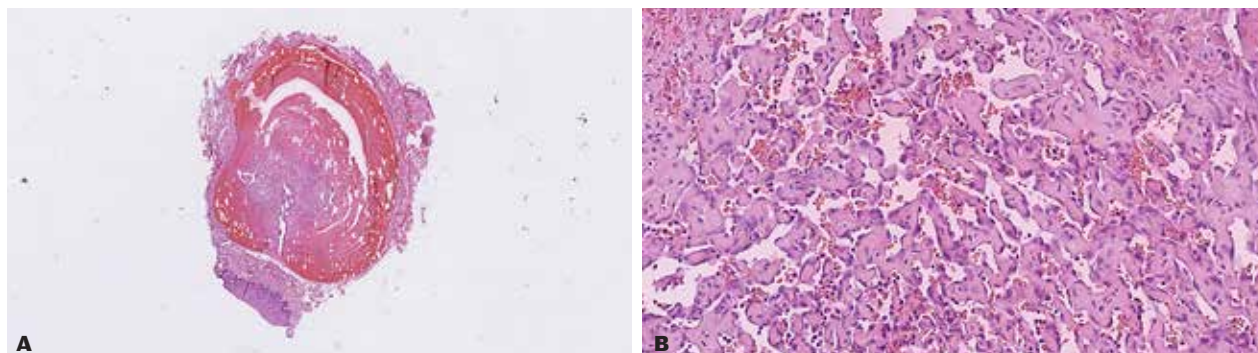


Fig. 2. A. Histologisk oversigtsbillede af IPEH, der viser et dilateret blodkar med organiserende trombe og papillær hyperplasi. **B.** Multiple små, slanke papillære strukturer, beklædt af et enkelt lag hyperkromatiske endotelceller. Ingen nekrose, atypi eller atypiske mitoser.

Fig. 2. A. Histological overview of IPEH showing a dilated vessel with an organising thrombus and papillary endothelial cell proliferation. **B.** Multiple small, delicate papillary structures lined by a single layer of hyperchromatic endothelial cells. No necrosis, atypia or atypical mitotic figures.

DISKUSSION

I nærværende artikel præsenteres en 74-årig kvinde med IPEH i overlæben. Kliniske differentialdiagnoser til en asymptomatisk, velafgrænset og langsomt voksende blålig hævelse i læberne vil almindeligvis inkludere hæmatom, traumatisk fibrom, hæmangiom, mucocele, pyogent granulom, Kaposi sarkom eller angiosarkom (4,9). Imidlertid vil mucocele og hæmangiom være de mest oplagte differentialdiagnoser i aktuelle patienttilfælde på baggrund af anamnesen og den kliniske præsentation (9).

Mucocele (ekstravasationscyster) er en spyttansamling i bindevævet, som oftest skyldes en traumebetinget beskadigelse af spytkirtlens udførselsgang med udsivning af spyt i omliggende væv (Fig. 3). Overfladisk beliggende mucoceler præsenterer sig klinisk som en asymptomatisk, blød, velafgrænset og fluktuerende hævelse med transparent eller blåligt udseende, mens dybereliggende mucoceler oftest vil fremtræde med normalt udseende slimhinde (10). Mucoceler forekommer oftest hos børn og unge, men kan optræde i alle aldersgrupper (11).

Klinisk billede af mucocele



Fig. 3. A. Mucocele i underlæben. Slimhinden fremtræder let hævet og blåligt misfarvet. **B.** Mucocele er frilagt ved en overfladisk incision i slimhinden og stump dissektion.
Fig. 3. A. Mucocele in the lower lip. The mucosa is slightly elevated and bluish. **B.** The mucocele is exposed through a superficial incision in the mucosa and blunt dissection.

Klinisk billede af hæmangiom

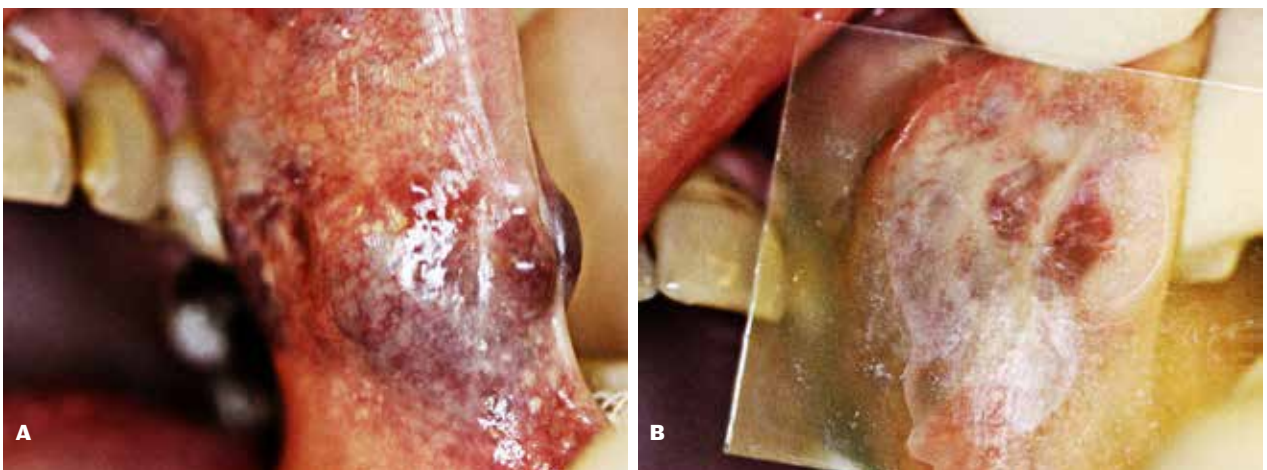


Fig. 4. A. Hæmangiom beliggende i kommissuren på venstre side. **B:** Hæmangiomer kan almindeligvis tømmes ved at presse et objektglas mod læsionen. Dette diagnostiske værktøj kan anvendes i forbindelse med differentialdiagnostiske overvejelser.
Fig. 4. A. Hemangioma in the left labial commissure. **B.** Hemangiomas can usually be drained by pressing a cover glass against the lesion. This diagnostic tool can be used for differential diagnostic considerations.

Mucoceler ses hyppigst i underlæben og sjældnere i overlæben (10,11). Mucoceler behandles sædvanligvis med kirurgisk excision, og recidivfrekvensen er lav (11). Endelig diagnose stilles på baggrund af den kliniske og histologiske undersøgelse. Hævelsen i aktuelle patienttilfælde minder om en mucocèle, men patientens alder og lokalisation var atypisk for en mucocèle.

Hæmangiomer er en hyppigt forekommende benign tumor karakteriseret ved øget proliferation af blodkar (12). Tumoren forekommer ofte i hoved-hals-region og ses almindeligvis allerede i barndommen og hyppigst hos kvinder (12-14). Intraorale hæmangiomer kendetegnes ved en asymptomatisk og blød forandring af varierende størrelse, som hyppigst optræder i kindslimhinden, tungen, ganen og på læberne (Fig. 4) (12). Overfladiske intraorale hæmangiomer karakteriseres ved en blåligt misfarvet hævelse, hvor overfladen er ujævn og lobuleret. Dybereliggende hæmangiomer er ofte indkapslet i bindevæv med en intakt epiteloverflade og præsenterer sig som rødlig/violet misfarvning af slimhinden. Diagnosen verificeres almindeligvis ved histologisk undersøgelse. Imidlertid foreligger der betydelig blødningsrisiko ved bioptering eller kirurgisk excision af hæmangiomer, specielt ved arteriovenøse malformationer (15). Behandlingen afhænger derfor af patientens gener samt størrelse og lokalisation af hæmangiomet. Mindre overfladiske hæmangiomer i mundhulen behandles oftest med

Klinisk relevans

Vaskulære tumorer i mundhulen differentieres almindeligvis på baggrund af anamnesen og den kliniske undersøgelse. I de patienttilfælde, hvor patienten er væsentligt generet af tumoren, eller den kliniske diagnose ønskes verificeret ved histologisk undersøgelse, kan der være behov for kirurgisk intervention. Imidlertid er bioptering eller kirurgisk fjernelse af vaskulære tumorer/malformationer forbundet med betydelig blødningsrisiko. Differentialdiagnostiske overvejelser og kirurgiske forholdsregler er således vigtige i forbindelse med diagnostik og behandling af vaskulære tumorer/malformationer i mundhulen.

kirurgisk excision, kryoterapi, injektion af skleroserende farmaka, systemisk steroidterapi og laserterapi, mens større læsioner eventuelt initialt behandles ved hjælp af arteriel embolisering, hvor kar aflukkes for blodtilførsel (12). I det aktuelle patienttilfælde var køn, lokalisation og kliniske fund karakteristisk for et overfladisk hæmangiomet og således en oplagt differentialdiagnose til IPEH. ♦

ABSTRACT (ENGLISH)

INTRAVASCULAR PAPILLY ENDOTHELIAL HYPERPLASIA – A RARE VASCULAR TUMOUR

BACKGROUND – Intravascular papillary endothelial hyperplasia (IPEH) is a relatively rare benign vascular tumour characterized by increased proliferation of endothelial cells within the blood vessels. The tumour has a predilection for the extremities and rarely seen in the oral cavity. The tumor can occur at any age but is most frequently seen in middle-aged woman. IPEH appears as a firm, asymptomatic and slow-growing bluish lesion, which is relatively well-defined and elevated from the adjacent tissue. The tumour is histologically characterized by a dilated vessel containing a reorganised and recanalised thrombus, covered with proliferating endothelial cells. Intravascular papillary endothelial hyperplasia is treated by surgical excision and the recurrence rate is low.

CASE STUDY – A 74-year-old woman was referred to the Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Aalborg University Hospital, for diagnosis and treatment of an asymptomatic bluish swelling in the upper lip, which was irritating while talking and chewing. The tentative diagnosis was haemangioma. The swelling was surgically removed and histological examination revealed an intravascular papillary endothelial hyperplasia. Healing was uneventful and future control was conducted by the patient's regular dentist.

CONCLUSION – Biopsy or surgical removal of vascular tumours in the oral cavity is associated with an increased risk of bleeding. The treatment strategy therefore relies on the patients' symptoms, differential diagnosis considerations as well as size and locality of tumour.

LITTERATUR

1. Clearkin KP, Enzinger FM. Intravascular papillary endothelial hyperplasia. *Arch Pathol Lab Med* 1976;100:441-4.
2. Masson P. Hemangioendotheliome végétant intravasculaire. *Bull Soc Anat (Paris)* 1923;93:517-32.
3. Buchner A, Merrell PW, Carpenter WM et al. Oral intravascular papillary endothelial hyperplasia. *J Oral Pathol Med* 1990;19:419-22.
4. Cohen A, Maly A, Azaz B. Intravascular papillary endothelial hyperplasia of the lower lip: surgical approach and review of the literature. *Gerodontology* 2009;26:305-8.
5. Murugaraj V, Kingston GT, Patel M et al. Intravascular papillary endothelial hyperplasia (Masson's tumour) of the oral mucosa. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2010;48:e16-7.
6. Makos CP, Nikolaidou AJ. Intravascular papillary endothelial hyperplasia (Masson's tumor) of the oral mucosa. Presentation of two cases and review. *Oral Oncol Extra* 2003;40:59-62.
7. Maktabi AM, Almater AI, Alkatan HM. Periocular intravascular papillary endothelial hyperplasia: A retrospective study. *Eur J Ophthalmol* 2022;32:1934-41.
8. Mirmohammadsadeghi H, Mashhadiabbas F, Latifi F. Huge central intravascular papillary endothelial hyperplasia of the mandible: a case report and review of the literature. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 2019;45:180-5.
9. Vieira CC, Gomes APN, Santos LG et al. Intravascular papillary endothelial hyperplasia in the oral mucosa and jawbones: A collaborative study of 20 cases and a systematic review. *J Oral Pathol Med* 2021;50:103-13.
10. Chaitanya P, Praveen D, Reddy M. Mucocele on lower lip: A case series. *Indian Dermatol Online J* 2017;8:205-7.
11. Nallasivam KU, Sudha BR. Oral mucocele: Review of literature and a case report. *J Pharm Bioallied Sci* 2015;7:S731-3.
12. Derindağ G, Sarıca I, Çağlayan F. Examination of oral hemangiomas by intraoral ultrasonography. *Oral Radiol* 2021;37:687-92.
13. Lescura CM, Andrade BAB, Bezerra K et al. Oral intramuscular hemangioma: Report of three cases. *J Cutan Pathol* 2019;46:603-8.
14. Balaji SM, Balaji P. Large hemangioma of the tongue. *Indian J Dent Res* 2020;31:979-82.
15. DeHart A, Richter G. Hemangioma: Recent advances. *F1000Res* 2019;18:1926.

HJÆLP DINE PATIENTER MED AT BEHOLDE ET SUNDT TANDKØD

parodontax er en flourtandpasta til daglig brug
med en unik 67% natriumbikarbonat formulering



58%

reduktion af
blødende tandkød*¹

4X

mere effektiv til at
fjerne plak**²

HALEON PRO

Læs mere om parodontax og bestil prøver
og patientmateriale ved at scanne QR-koden
eller tilmelde dig på www.haleonpro.dk



*Efter 24 uger. Alle patienter fulgte et regime med professionel rengøring ved baseline og herefter tandbørstning to gange dagligt i 24 uger.

**sammenlignet med en almindelig tandpasta efter professionel rengøring og 24 ugers børstning to gange dagligt.

1. Akwagyiram et al. Efficacy and Tolerability of Sodium Bicarbonate Toothpaste in Subjects with Gingivitis: A 6-month Randomized Controlled Study. Oral Health Prev. Dent. 2017; 16(5): 401-407.
2. Jose A et al. J Clin Dent. 2018; 29:33-39.

GlaxoSmithKline Consumer Healthcare ApS. Haleon, tidligere del af GSK, er ansvarlig for dette materiale.