

Coincidence of Large Lingual Lymphangioma and Geographic Tongue: A Case Report and Literature Review

Fatemeh Owlia¹, Ehsan Babaie Zarch², Yasaman Sabaghzadegan^{2*}

¹Associate Professor, Department of Oral and Maxillofacial Medicine, Shahid Sadoughi University of Medical Sciences, Yazd, Iran

²Assistant Professor, Department of Oral and Maxillofacial Medicine, Shahid Sadoughi University of Medical Sciences, Yazd, Iran

Received: 25 December 2023, Accepted: 01 May 2024

Background: Lymphangioma is a type of benign hamartomatous tumor in the lymphatic network, which is considered as a developmental vascular malformation that can be combined with hemangioma. The onset of lymphangiomas is either at the time of birth or up to 2 years old and rarely occurs in the adulthood. Lymphangiomas have a significant prevalence in the head and neck region. But oral cavity involvement is rare. In the oral cavity, the tongue is a common site of involvement, which may be seen individually or as a diffuse swelling. Clinically, lymphangiomas are painless soft swelling lesions with slow growth. The treatment of lymphangioma depends on its type, size and the involvement of the anatomical structures of the surrounding tissues. Recurrence is also common due to the nature of infiltration.

Case report: This study reports a case of coincidence of unilateral large lingual lymphangioma and geographic tongue in a 21-year-old man in the oral cavity.

Conclusion: Lymphangiomas are benign lymphatic malformations and can cause problems for the patient with irritations in the oral cavity. Therefore, doctors and dentists should have knowledge for early diagnosis and then appropriate referral and treatment for these patients

Keywords: lymphangioma, geographic tongue, oral cavity

*Corresponding Author: y.sabaghzadegan@stu.ssu.ac.ir

➤ **Please cite this paper as:** Owlia F, Babaie Zarch E, Sabaghzadegan Y. Coincidence of large lingual lymphangioma and geographic tongue: A case report and review of articles. *J Mashhad Dent Sch* 2024, 48(2):699-705.

➤ **DOI:** [10.22038/jmds.2024.24227](https://doi.org/10.22038/jmds.2024.24227)



رخداد همزمان لنفانژیومای بزرگ زبانی و زبان جغرافیایی: گزارش یک مورد و مروری بر مقالات

فاطمه اولیاء^۱، احسان بابایی زارچ^۲، یاسمن صباغ زادگان^{۳*}

^۱دانشیار، گروه بیماری‌های دهان و فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی شهید صدوقی یزد، یزد، ایران
^۲استادیار، گروه بیماری‌های دهان و فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی شهید صدوقی یزد، یزد، ایران

تاریخ ارائه مقاله: ۱۴۰۲/۱۰/۰۴ - تاریخ پذیرش: ۱۴۰۳/۰۲/۱۲

چکیده:

مقدمه: لنفانژیوما، نوعی تومور هامارتوماتوز خوش خیم در شبکه ی لنفاوی است که به عنوان مالفورماسیون عروقی- تکاملی در نظر گرفته می شود و میتواند تلفیقی با همانژیوما باشد. آغاز لنفانژیوما یا در زمان تولد یا حداکثر تا ۲ سالگی بوده و به ندرت در زمان بزرگسالی می باشد. لنفانژیوماها در ناحیه سر و گردن شیوع قابل توجهی دارد، اما درگیری در حفره دهان نادر میباشد. در دهان، مکان شایع درگیری، زبان می باشد که ممکن است به صورت منفرد یا یک تورم منتشر دیده شود. از نظر بالینی، لنفانژیوما به صورت ضایعات برجسته بافت نرم بدون درد با رشد آهسته می باشد. درمان لنفانژیوما وابسته به نوع آن، سایز و درگیری ساختارهای آناتومیک بافت های اطراف می باشد. عود نیز به علت ماهیت ارتشاحی شایع می باشد.

گزارش مورد: این مطالعه به گزارش یک مورد رخداد همزمان لنفانژیومای بزرگ زبانی به صورت یکطرفه و زبان جغرافیایی در یک آقای ۲۱ ساله در حفره ی دهان میپردازد.

نتیجه گیری: لنفانژیوماها، مالفورماسیون های خوش خیم لنفاتیک هستند و با تحریکات در ناحیه دهان می توانند مشکلاتی برای بیمار ایجاد کنند. لذا پزشکان و دندانپزشکان برای تشخیص زودهنگام و به دنبال آن ارجاع و درمان مناسب برای این بیماران، آگاهی داشته باشند.

کلمات کلیدی: لنفانژیوما، زبان جغرافیایی، دهان

مجله دانشکده دندانپزشکی مشهد / سال ۱۴۰۳ / دوره ۴۸ / شماره ۲: ۷۰۵-۶۹۹

مقدمه

درگیری می باشد، ولی زمانی که حفره دهان درگیر شود؛ مکان شایع آن، دو سوم قدامی زبان است. سایر نواحی شایع در دهان ناحیه ی لب ها، مخاط باکال، کام نرم و کف دهان می باشد. ضایعه بر روی زبان ممکن است به صورت منفرد یا یک تورم منتشر دیده شود.^(۳) از نظر بالینی، لنفانژیوماها به صورت ضایعات برجسته بافت نرم بدون درد با رشد آهسته می باشند که ممکن است در اثر عفونت یا خون ریزی، رشد سریع پیدا کنند.^(۴) ضایعات سطحی به صورت ندول های برجسته با رنگ صورتی یا زرد بوده که

لنفانژیوما نوعی تومور هامارتوماتوز خوش خیم شبکه ی لنفاوی است که به عنوان مالفورماسیون عروقی تکاملی در نظر گرفته می شود و می تواند تلفیقی با همانژیوما باشد.^(۱) لنفانژیوما برای اولین بار در سال ۱۸۴۵ توسط Virshow معرفی شد.^(۲) کشف لنفانژیوماها یا در زمان تولد (حدود ۷۰-۶۰ درصد) یا حداکثر تا ۲ سالگی (۹۰ درصد) و به ندرت در بزرگسالی می باشد. لنفانژیوماها در ناحیه سر و گردن به ویژه در ناحیه مثلث خلفی گردن شیوع قابل توجهی دارند. حفره دهان مکان نادر

اسکلروتراپی، تجویز استروئید، آمبولیزیشن، لیگانند و لیزر.^(۱-۳) عوارض لنفانژیوما روی بیمار شامل مشکلات زیبایی، اکلوزالی، عملکردی و روانی می‌باشد^(۱۰)، که جدی ترین آنها عفونت بوده و میتواند منجر به آنژین لودویگ شود. عود نیز به علت ماهیت ارتشاحی، شایع می‌باشد.^(۱) در مطالعه حاضر، یک مورد لنفانژیوماى ایزوله نسبتاً بزرگ در زبان گزارش شد.

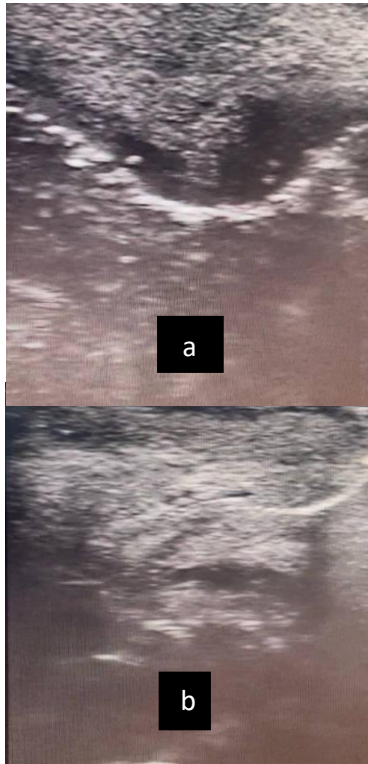
گزارش مورد

بیمار آقای ۲۱ ساله با شکایت از بزرگ شدگی زبان در ناحیه قدام بود، که از ۲ سالگی ضایعه در دهانش وجود داشت. ضایعه همزمان با رشد بیمار بزرگ شده و بعد از ۱۸ سالگی به اندازه ثابت رسیده بود. اخیراً بیمار متوجه اندکی تغییر ضایعه شده بود که تصمیم به پیگیری و درمان قطعی گرفته بود.

در معاینه بالینی، توده آگزوفیتیک در سطح پشتی زبان به صورت وزیکول‌های متعدد حاوی مایع شفاف در نیمه راست قسمت قدامی زبان به ابعاد ۳ در ۵ سانتی متر، با سطح pebbly و نمای شبیه تخم قورباغه (frog-egg) دیده شد و نیز در کل سطح پشتی زبان، زبان جغرافیایی و زبان شیاردار که دو سر طیف یک وضعیت هستند، مشاهده شد و در زمان مصرف برخی خوراکی‌ها، احساس سوزش می‌کرد. (شکل ۱) در معاینه، ضایعه دارای قوام نرم و fluctuant بود. از لحاظ پایه، ضایعه اتصال کامل به بافت زیرین به صورت قاعده پهن sessile داشت، در لمس غیر حساس بود و تست دیاسکوپى منفی بود.

در تاریخچه فامیلی و اجتماعی بیمار، مورد خاصی ذکر نشد و این مشکل در خانواده و بستگان او سابقه نداشت و از نظر سیستمیک، بیمار سالم بود. بیمار در مراجعات قبلی

می‌تواند به علت خونریزی‌های ثانویه به صورت قرمز یا بنفش مشاهده شود. ضایعات عمقی تر به صورت توده‌های برجسته و نرم با رنگ نرمال توصیف می‌شوند.^(۲) زبان جغرافیایی به عنوان یکی از ضایعات شایع در سطح پشتی زبان می‌باشد که الگوهای متفاوتی را دارا است. این ضایعات ممکن است از نظر مکان، الگو و اندازه تغییر کنند، از این رو به این ضایعات "مهاجر" نیز می‌گویند.^(۵) زبان جغرافیایی می‌تواند بدون علامت بوده یا در بیمار باعث درد و سوزش شود.^(۶) زبان شیاردار در برخی پژوهش‌ها شیوع بیشتری در مردان داشته است. علت آن نامشخص است ولی ممکن است ارث، سن و عوامل محیطی در ایجاد آن دخیل باشد. از آن جایی که خیلی از بیماران این ضایعه را همراه با زبان جغرافیایی دارند، احتمال می‌رود نقش یک یا چند ژن مشابه در ارتباط با هر دو وضعیت مطرح باشد.^(۷) لنفانژیوما براساس سائز عروق لنفاوی به سه زیر گروه تقسیم می‌شود: ماکروسیستیک (زمانی که فضاهای سیستیک بیش از دو سانتی متر وجود داشته باشد)، میکروسیستیک (زمانی که کانال‌های عروقی کمتر از ۲ سانتی متر باشند) و گروه سوم میکس (ترکیبی) می‌باشد.^(۲) برخی لنفانژیوماها به صورت تلفیقی با همانژیوما تحت عنوان لنفوهمانژیوما نامیده میشود.^(۸) تشخیص لنفانژیوما، بالینی می‌باشد و روش‌های تصویر برداری مانند داپلر رنگی می‌تواند در شناسایی این ضایعه، کمک کننده باشد. اولتراسونوگرافی نیز می‌تواند برای شناسایی ماهیت سیستیک و اجزای مایع به کار رود در حالیکه آنژیوگرافی می‌تواند برای حذف سایر ضایعات عروقی به کار رود.^(۹) درمان لنفانژیوما وابسته به نوع آن، سائز و درگیری ساختارهای آناتومیک بافت‌های اطراف می‌باشد. روش‌های متفاوتی برای درمان لنفانژیوما ذکر شده است مانند اشعه درمانی، کرایوتراپی، الکتروکوتر،



شکل ۲a: سونوی ضایعه لنفانژیوما از بعد فوقانی، b: سونوی ضایعه لنفانژیوما از بعد تحتانی



شکل ۳: فالوآپ ۲ ماهه بیمار

از کودکی تاکنون، داروهای مختلف و خانگی استفاده کرده بود که هیچ کدام تاثیری نداشت. برای بیمار سونوگرافی از ناحیه داخل دهان و ضایعه درخواست شد. طبق گزارش متخصص رادیولوژی دهان و فک و صورت مشخص شد که ضایعه دارای echogenicity کلی هموزن و iso-echo بوده و نواحی hypo echo پراکنده در ضایعه مشاهده شد که معرف عروق خونی بودند. عروق خونی زبان اندکی افزایش یافته بود، که با توجه به بزرگی ضایعه، جهت تغذیه بافتی بود. (شکل ۲ a و b). با توجه به شواهد موجود، تشخیص های افتراقی مالفورماسیون های عروقی، آمیلوییدوزیس، نوروفیبروماتوزیس و گرانولر سل تومور مطرح شد.^{(۱۱) و (۱۲)} که با توجه به عدم وجود مشکلات سیستمیک همراه در بیمار، وجود ضایعه از سال های اول پس از تولد، افزایش سایز همراه با رشد کودک، بدون درد بودن، تشخیص رادیوگرافی براساس سونوی انجام شده و بررسی های بالینی، متناسب با لنفانژیوم بود. برای بررسی بیشتر، بیمار دوماه تحت فالوآپ قرار گرفت که تغییری در اندازه ضایعه مشاهده نشد (شکل ۳) و سپس بیمار جهت درمان مناسب به جراح فک و صورت ارجاع داده شد.



شکل ۱: نمای داخل دهانی از ضایعه در زمان مراجعه بیمار.

بحث

لنفانژیوما، تومور هامارتوماتوز خوش خیم شبکه های لنفاوی است که به عنوان مالفورماسیون عروقی تکاملی در نظر گرفته می شود.^(۳) لنفانژیوما در ناحیه سر و گردن به ویژه در ناحیه مثلث خلفی گردن، شیوع قابل توجهی دارد. حفره دهان، مکان نادر درگیری می باشد ولی زمانی که حفره دهان، درگیر شود، مکان شایع آن دو سوم قدامی زبان است.^(۱،۲)

ضایعات مخاط دهان، جزء اولین علایم بسیاری از بیماریهای سیستمیک هستند که ضایعات زبانی مهمترین آنها است.^(۱۸) زبان جغرافیایی و زبان شیاردار از ضایعات شایع زبان می باشند. زبان جغرافیایی یا گلوستیت مهاجر خوش خیم ممکن است به صورت پچهای اریتماتوز با حاشیه های سفید رنگ در سراسر سطح زبان، با دوره هایی از تشدید و بهبودی مشخص شود. تشخیص بر اساس تاریخچه و تظاهرات بالینی و ویژگی های ضایعه به ویژه الگوی مهاجر در سطح پشتی زبان است.^(۱۶)

مورد گزارش شده در مطالعه حاضر از لحاظ بزرگی زبان بدون درگیری نواحی دیگر گردن، مشابه مطالعه Haidary و همکاران^(۹) بود. در مطالعه آنها، دختر ۱۲ ساله ای با بزرگی زبان، بدون درد و خونریزی مراجعه کرده بود و نمای تخم قورباغه در نمای ظاهری زبان مشهود بود.

در مطالعه ای که توسط Cherrabi و همکاران^(۲) انجام شد، سه مورد لنفانژیوما گزارش شده بود که دو مورد از آنها داخل دهانی و روی زبان بود و هر دو به صورت دو طرفه و در کودکان ۱ و ۱۲ ساله مشاهده شده بود. مطالعه ی Vasconcelos و همکاران^(۳) نیز گزارش یک مورد لنفانژیوما داخل دهانی را در یک خانم ۱۷ ساله در ناحیه

کام نرم داشتند که بیمار با شکایت از احساس ناراحتی هنگام غذا خوردن و خونریزی متناوب، مراجعه کرده بود. اما در مطالعه حاضر، لنفانژیوما در آقای ۲۱ ساله بود که علی رغم بزرگی ضایعه، شکایتی از مشکل در غذا خوردن و حرف زدن نداشت.

در مطالعه Rathan و همکاران^(۱۰) نیز، یک مورد لنفانژیوما در پسری ۵ ساله گزارش شد. در معاینه بالینی، متوجه بزرگی زبان در دو سوم قدامی زبان هم در سطح پشتی و هم در سطح شکمی زبان شدند. دو سوم قدامی سطح پشتی زبان، شایعترین مکان لنفانژیوماى داخل دهانی می باشد و میتواند باعث ماکروگلوستیا و مشکلات اکلوزالی و فانکشنال شود. در گزارش آنها نیز بیمار اختلال در صحبت کردن داشت ولی در گزارش ما با اینکه ضایعه در دو سوم قدامی سطح پشتی زبان بود، بیمار مشکلی از نظر گفتاری نداشت.

مطالعه Devi و همکاران^(۱۳)، لنفانژیوما را در خانمی ۴۵ ساله در کام نرم بررسی کردند که از ۳ ماه قبل همراه با درد بود و افزایش اندازه تدریجی پیدا کرده بود. در معاینه داخل دهانی، تورم منتشر آبی رنگ با ابعاد ۲ در ۳ سانتی متر در سمت چپ کام نرم مشاهده شد. در لمس نیز ضایعه درد ناک بود. بعد از نمونه برداری و بررسی هیستوپاتولوژی ضایعه، تشخیص لنفانژیوما گذاشته شد. در مطالعه ما، ضایعه بدون علامت بود و احساس سوزش در بعضی مواقع، به زبان جغرافیایی همراه نسبت داده شد.

در مطالعه ای دیگر، Hasan و همکاران^(۱۴) نیز، به گزارش یک مورد لنفانژیوما در آقای ۴۵ ساله پرداختند. آنها لنفانژیوما را در مخاط لب پایین که به علت عادت جویدن در حال بزرگ شدن بود، بررسی کردند. ضایعه به صورت

لذا مداخله اورژانسی ضروری نبود. با توجه به تمایل بیمار به درمان محافظه کارانه و موقعیت ضایعه که با جراحی احتمال آسیب وسیع^(۲) بعد از آن وجود داشت، برای به حداقل رساندن آسیب بافتی، بیمار جهت درمان با لیزر که منجر به کوچک شدن ضایعه^(۲۰) می شود، به جراح فک و صورت ارجاع شد.

نتیجه گیری:

با توجه به اینکه لنفانژیوماها، مالفورماسیون های خوش خیم لنفاتیک هستند و با تحریکات در ناحیه دهان می توانند مشکلاتی برای بیمار ایجاد کنند، لذا توصیه می شود پزشکان و دندانپزشکان با نمای این ضایعات برای تشخیص زودهنگام و به دنبال آن ارجاع و درمان مناسب برای این بیماران، آگاه باشند، تا با تشخیص به موقع و دقیق این ضایعات، از عوارضی که ممکن است در آینده رخ دهد جلوگیری شود.

ملاحظات اخلاقی:

از بیمار جهت انتشار عکس و اطلاعات وی رضایت نامه کتبی اخذ شد و نیز جهت انتشار این گزارش مورد از کمیته اخلاق به شماره IR.SSU.DENTISTRY.REC.1402.042 مجوز گرفته شد.

تقدیر و تشکر:

بدینوسیله از بیمار مربوطه که همکاری کامل با نویسندگان را داشتند، قدردانی می گردد.

تضاد منافع:

هیچ گونه تضاد منافی برای نویسندگان وجود ندارد.

ندول منفرد به ابعاد ۲ در ۱/۵ سانتی متر با سطح صاف بود، درحالی که در مطالعه ی ما ضایعه دارای سطح شبیه تخم قورباغه بود.

تشخیص های افتراقی مطرح شده برای لنفانژیوما شامل مالفورماسیون های عروقی، آمیلوییدوزیس، نوروفیبروماتوزیس، گرانولر سل تومور و سایر مواردی که باعث ماکروگلوسیا می شوند (مانند هایپوتیروییدسم مادرزادی، هایپرتروفی اولیه زبان و ضایعات تحریکی مانند پیوژنیک گرانولوما) می باشد، که با توجه به شرایط سیستمیک و پوستی بیمار، تاریخچه ی ضایعه، عدم تروما یا تحریک ناحیه، نمای بالینی ضایعه و بررسی سونوگرافی بیمار، محتمل ترین تشخیص گذاشته می شود.

عود در لنفانژیوما با توجه به ماهیت ارتشاحی آنها شایع است. براساس مطالعه Orvidas^(۱۵) میزان عود لنفانژیوما، ۳۹ درصد میباشد و مکان های شایع عود زبان، ناحیه هیپوفارنکس و لارینکس میباشد.^(۱)

درمان های پیشنهاد شده در مقالات برای لنفانژیوم به نوع بافت شناسی، اندازه ضایعه، میزان تهاجم به ساختارهای آناتومیکی و نفوذ به بافت های اطراف بستگی دارد. روش های درمانی مختلفی برای مدیریت لنفانژیوم شامل لیزر درمانی، کرایوتراپی، آمبولیزاسیون و الکتروکوتر معرفی شده است. انواع مختلفی از عوامل اسکروز کننده برای درمان لنفانژیوم از جمله مواردی که بر روی زبان می باشد، مانند بلنومایسین و OK-432 نیز آزمایش شده است. برداشتن ضایعه با جراحی، اولین گزینه برای درمان لنفانژیوم در نظر گرفته می شود، زیرا تمایل به آتروفی خود به خودی در این ضایعه، نادر است.^(۱۷،۱۹،۲۱)

از آنجایی که در مطالعه ی ما، اندازه ی ضایعه ی بیمار با توجه به سن و نیز در فالوآپ دو ماهه تغییری نداشت و نیز بیمار مشکلی در راه هوایی یا اختلال فانکشنال نداشت،

منابع:

1. Bhayya H, Pavani D, Avinash Tejasvi ML, Geetha P. Oral lymphangioma: A rare case report. *Contemp Clin Dent* 2015; 6(4):584-7.
2. Cherrabi K, Ouattassi N, Titou A, Kamal D, El Alam M. Cystic lymphangiomas of the tongue: 3 rare cases and a literature review of classifications and therapeutic possibilities. *J Otolaryngology* 2022; 38(1):24.
3. Vasconcelos M, Marcelo Gadelha et al. Oral lymphangioma: case report. *RSBO (Online)* 2011; 8, 3: 352-56.
4. Weiss SW, Goldblum JR. *Soft Tissue Tumors*. 4th ed. St. Louis: Mosby. Tumors of lymph vessels. 2001:955-67.
5. Oyetola EO, Oluwande A, Agho ET. Geographic tongue: Pattern of presentation in a south western Nigerian teaching hospital. *Ann Ib Postgrad Med* 2018; 16(2):131-35.
6. Nandini DB, Bhavana SB, Deepak BS, Ashwini R. Paediatric Geographic Tongue: A Case Report, Review and Recent Updates. *J Clin Diagn Res* 2016; 10(2): ZE05-9.
7. Khozimeh F, Akhavan Taheri M. Evaluation of relative frequency of geographic tongue and fissured tongue in psoriatic patients. *Journal of Isfahan Dental School* 2009; 5 (2):88-93.
8. Lucena LP, Bonan PRF, Costa ALP, a Carvalho LPB, Ferreira VY, et al. Lymphohemangioma on Hard Palate: Case Report. *J Clin Case Rep* 2016; 6: 812.
9. Haidry N, Shivhare P, Vaidyanathan A, Ahmad Mokhtar E, Ghimire AC. Lymphangioma of the oral and maxillofacial region: A report of three cases. *Cureus* 2022;15; 14(12):e32577.
10. Rathan JJ, Vardhan BG, Muthu MS, Venkatachalapathy, Saraswathy K, et al N. Oral lymphangioma: a case report. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 2005; 23(4):185-9.
11. Tayefeh A, Asadollahi A, Saatloo MV. A Rare Case Report of Oral Lymphangioma in Buccal Mucosa. *Ann Clin Case Stud*. 2020; 2(4): 1035.
12. Michael Glick, Martin S. Greenberg, Peter B. Lockhart, Stephen J. Challacombe, John Wiley & Sons. *Burket's Oral Medicine* 2021; 185.
13. Devi SI, Gupta MK, Prasad KN, Shankar T, Majid J. Lymphangioma of soft palate: A case report. *J Evolution Med and Dent Sci* 2014; 3(1):13607.
14. Hasan S, Ahmad SA, Kaur M, Panigrahi R, Panda S. lymphangioma of the lower lip-a diagnostic dilemma: report of a rare case with a brief literature review. *Case Rep Dent* 2022: 7890338.
15. Orvidas LJ, Kasperbauer JL. Pediatric lymphangiomas of the head and neck. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2000; 109(4):411-21.
16. Shahzad M, Sattar A, Faran Ali S. Geographic tongue: Case report and literature review. *Pakistan Oral Dent J* 2014; 34(3): 409-10.
17. Goswami M, Singh S, Gokkulakrishnan S, Singh A. Lymphangioma of the tongue. *Natl J Maxillofac Surg* 2011; 2(1):86-8.
18. Zahedpasha Sh, Salehi M, Alizadeh Navae R, Hali H, Mesgarani A, et al T. Frequency of tongue lesions in high school students of sari, Iran, in 2019. *J Mashhad Dent Sch* 2021; 44(4): 349-57.
19. Mustafa A. Lymphangioma of the tongue: A review. *J Clin Diagn Res* 2021; 15(5): ZE01-E03.
20. Hwang J, Lee YK, Burm JS. Treatment of tongue lymphangioma with intralesional combination injection of steroid, Bleomycin and Bevacizumab. *Arch Craniofac Surg* 2017; 18(1):54-58.
21. Stanescu L, Georgescu EF, Simionescu C, Georgescu I. Lymphangioma of the oral cavity. *Rom J Morphol Embryol* 2006; 47(4):373-77.