

**Laporan Kasus****Bedah sinonasal endoskopik angiofibroma nasofaring belia:  
laporan seri kasus berbasis bukti (*evidence based*)**

**\*Retno Sulisty Wardani, \*Ika Dewi Mayangsari, \*\*Lisnawati, \*\*\*Jacub Pandelaki,  
\*Kharisma Prameswari, \*Endang Mangunkusumo**

\*Departemen Ilmu Kesehatan Telinga Hidung Tenggorok Bedah Kepala-Leher

\*\*Departemen Patologi Anatomi, \*\*\*Departemen Radiologi

Fakultas Kedokteran Universitas Indonesia - RS Dr. Cipto Mangunkusumo

Jakarta

**ABSTRAK**

**Latar belakang:** Angiofibroma nasofaring belia (ANB) merupakan tumor jinak secara histologis, namun bersifat ganas secara lokal yang terjadi terutama pada anak laki-laki usia remaja. Tumor jenis ini bersifat sangat agresif dan sering dihubungkan dengan tingginya angka morbiditas dan mortalitas karena kecenderungan tumor yang mudah berdarah. **Tujuan:** Mempresentasikan 3 kasus dengan diagnosis klinis ANB yang dilakukan ekstirpasi secara bedah sinonasal endoskopik. Telaah literatur terstruktur dilakukan untuk menganalisis keputusan dan aplikasi pemilihan teknik bedah ini. **Kasus:** Tiga kasus ANB yang telah dilakukan ekstirpasi dengan bedah endoskopik dianalisis berdasarkan variasi gejala klinis, gambaran histopatologi dan gambaran radiologiknya yang berguna untuk perencanaan pembedahan sinonasal endoskopik. **Penatalaksanaan:** Tatalaksana utama ANB adalah dengan pembedahan, namun pada kasus-kasus tertentu dapat dipilih modalitas radioterapi, terapi hormon dan pembedahan dengan pisau gamma. Kemajuan teknologi memudahkan para ahli bedah THT untuk menggunakan pendekatan endoskopi sebagai alternatif pendekatan bedah pada pasien ANB. **Kesimpulan:** Bedah sinonasal endoskopik ANB dapat dilakukan untuk tumor berukuran T1 dan T2 berdasarkan klasifikasi Fisch. Faktor lain yang harus diperhatikan untuk keberhasilan tindakan adalah pemahaman anatomi endoskopik hidung dan sinus paranasal untuk penetapan akses secara sentripetal menuju perlekatan utama ANB pada foramen sfenopalatina dan lempeng pterigoid, serta kerjasama antara ahli Rinologi dengan ahli Bedah Kepala-Leher Onkologi dalam teknik bedah sinonasal endoskopik 4 tangan (*four-hand technique*).

**Kata kunci :** *angiofibroma, bedah endoskopik, arteri sfenopalatina, lempeng pterigoid os sfenoid.*

**ABSTRACT**

**Background:** *Juvenile nasopharyngeal angiofibroma (JNA) is a histologically benign, but locally invasive neoplasm occurring most often in adolescent males. These tumors are highly aggressive and are associated with significant morbidity and mortality due to its tendency to bleed. Purpose:* *To present evidence based case-report on endoscopic removal of JNA as an alternative technique besides the open approach. Cases:* *Three cases of JNA managed endoscopically of their removal and the difference of clinical symptoms based on the histopathological variation and radiological description analysis, giving benefits in endoscopic surgical planning. Management:* *The classical treatment for JNA is surgery, however there are cases in which may indicate radiotherapy or even hormone therapy and gamma knife surgery. Recent advances in technology enable ENT surgeons to use the endonasal technique as an alternative in treating JNA patients. Conclusion:* *Endoscopic removal of JNA was successfully performed for T1 and T2 tumor based on Fisch classification. To support a good management for JNA cases endoscopically, carefull considerations should be made to determine accesses toward the predominant*

*attachment of the tumor to sphenopalatine foramen and pterygoid plate. Rhinologists and Oncology-Head and Neck surgeons should have deep understanding of endoscopic anatomy of lateral nasal wall and mastering the art of four-hand technique of endoscopic sinonasal surgery.*

**Keywords :** *angiofibroma, endoscopic surgery, sphenopalatine artery, pterygoid plate of sphenoid bone.*

**Alamat Korespondensi:** Retno S. Wardani, email: retno.wardani@ui.ac.id

## PENDAHULUAN

Insidens angiofibroma nasofaring belia (ANB) sebesar 0,05-0,5% dari seluruh tumor kepala-leher. Lesi ini hampir selalu ditemukan pada pasien laki-laki remaja, dalam kisaran usia 9-19 tahun. Angiofibroma nasofaring belia umumnya muncul sebagai sumbatan hidung unilateral, epistaksis dan adanya massa di nasofaring. Epistaksis yang dikeluhkan pasien sifatnya berulang dan berat, seringkali sulit ditangani dengan penanganan epistaksis biasa.<sup>1-9</sup> Sejak abad ke-19, para peneliti telah mengajukan berbagai teori usulan mengenai asal muasal ANB. Sternberg dan Hubbard yang dikutip oleh Nicolai dkk<sup>3</sup> mengajukan hipotesis ANB sebagai suatu bentuk spesifik dari hemangioma, sementara Schiff, pada tahun 1959 seperti yang dikutip oleh Nicolai dkk<sup>3</sup> mengajukan teori jaringan vaskuler ektopik yang proliferasi. Secara histologis lesi angiofibroma terdiri dari jaringan yang penuh dengan vaskuler yang berendotel, yang tertanam dalam stroma fibrosa yang mengandung “fibrosit” stroma, sel mast dan sel-sel inflamasi lainnya. Pada stroma yang padat terdapat pembuluh darah berdinding tebal dalam berbagai bentuk dan ukuran, yang diselingi oleh sel-sel endotelial namun tanpa disertai atau dengan sedikit otot polos atau serat elastis. Kurangnya otot polos dapat menjadi penyebab timbulnya perdarahan masif pada tumor ini tanpa adanya manipulasi atau hanya dengan manipulasi yang minimal.<sup>2-4</sup>

Berdasarkan bukti imunohistokimia dan mikroskop elektron, diketahui bahwa sebagian besar fibrosit stroma merupakan fibroblas yang tidak aktif, sementara sebagian lainnya menunjukkan fibroblas sekretori yang aktif. Penelitian terbaru menunjukkan bahwa semakin banyak bukti genetik dan molekuler yang menyatakan bahwa angiofibroma sesungguhnya merupakan neoplasma. Adanya akumulasi *beta-catenin nuklear* pada sel stroma menunjukkan bahwa bukan sel endotel, melainkan sel stromalah yang bersifat neoplastik.<sup>3</sup>

Biopsi untuk menegakkan diagnosis

histologik dikontraindikasikan mengingat sifat tumor yang sangat mudah berdarah dan sulit untuk diatasi. Dengan adanya kemajuan dari angiografi, penegakan diagnosis secara definitif serta embolisasi dari pembuluh darah yang memperdarahi tumor dapat dilakukan pada saat yang sama.<sup>7</sup>

Pemeriksaan pada tomografi komputer (TK) yang dapat mengkonfirmasi diagnosis adalah: a. bentuk lengkung ke arah anterior dari dinding posterior maksila (tanda Holman-Miller), b. erosi dari dasar sinus sfenoid dan tumor yang berekstensi dari nasofaring ke dalam sinus sfenoid, c. erosi dari dasar lempeng pterigoid, d. karakteristik distribusi tumor dengan penyngatan, berbentuk lobul dan tumor berbatas tegas melibatkan fosa infratemporal dan meluas melalui fisura orbita inferior, orbita posterior dan fisura orbita superior. MRI menunjukkan gambaran “*salt and pepper*”, hasil dari aliran vaskuler dari tumor.<sup>9</sup>

Berbagai sistem klasifikasi telah disusun untuk menilai perluasan angiofibroma nasofaring termasuk di antaranya klasifikasi oleh Chandler dkk, Session dkk, Andrew dkk, Fisch dkk dan Radowski dkk.<sup>9-12</sup> (lihat tabel pada lampiran).

Tatalaksana utama pada angiofibroma adalah melalui pembedahan. Pembedahan endoskopik hadir sebagai pendekatan alternatif terhadap tatalaksana angiofibroma nasofaring didukung oleh rendahnya morbiditas dan tingkat rekurensi yang sama dibandingkan pendekatan pembedahan secara terbuka.<sup>5</sup> Penelitian oleh Frympas dkk<sup>5</sup> mendapatkan hasil bahwa reseksi secara endoskopi merupakan alternatif yang dianjurkan sebagai tatalaksana pada angiofibroma stadium I dan IIa/b dibandingkan pendekatan pembedahan secara terbuka. Pendekatan secara endoskopi diindikasikan pada invasi lesi yang terbatas pada fosa infratemporal disertai erosi dasar tengkorak. Pendekatan ini merupakan modalitas yang aman dan efektif mengingat hasil parut yang minimal, reseksi tulang yang minimal, jumlah perdarahan minimal dan tingkat rekurensi yang rendah. Adapun pendekatan secara nasoendoskopi bukan

tanpa keterbatasan. Berdasarkan penelitian oleh Nicolai dkk,<sup>6</sup> pendekatan secara nasoendoskopi tidak dianjurkan pada lesi yang melibatkan arteri karotis interna, sinus kavernosus, dan nervus optikus. Pada kasus demikian, maka dibutuhkan pendekatan pembedahan terbuka agar dapat mencapai lesi angiofibroma dan tercapainya reseksi secara radikal.

Laporan kasus ini dibuat sebagai bahan peningkatan wawasan mengenai pembedahan endoskopik sebagai alternatif pilihan penatalaksanaan bedah angiofibroma nasofaring. Pada makalah ini juga diterapkan analisis *evidence based surgery* sebagai upaya penilaian kritis terhadap berbagai literatur ilmiah berkaitan dengan laporan kasus.

## TELAAH LITERATUR BERDASARKAN EVIDENCE BASED SURGERY

### Pertanyaan klinis

Apakah pembedahan endoskopik dapat menjadi alternatif tatalaksana pada angiofibroma nasofaring dibandingkan pembedahan terbuka?

### Metode pencarian literatur

Penelusuran literatur melalui PUBMED dengan kata kunci: *nasopharyngeal angiofibroma and endoscopic* didapatkan 132 literatur. Penelusuran literatur dilanjutkan kembali dengan kata kunci: *nasopharyngeal angiofibroma and endoscopic and study*, didapatkan 52 literatur. Penelusuran literatur kemudian menggunakan kata kunci: *nasopharyngeal angiofibroma and endoscopic and study and open surgery* didapatkan 12 literatur.

Dari keduabelas literatur tersebut tidak didapatkan literatur dengan *evidence* tertinggi yaitu RCT (*Randomized Controlled Trial*) ataupun metaanalisis, namun didapatkan 3 literatur yang menggunakan studi retrospektif berupa studi perbandingan antara kedua intervensi bedah tersebut. Studi tersebut diajukan oleh Yiotakis dkk<sup>15</sup> Bosraty dkk<sup>16</sup> dan Oliveira dkk<sup>17</sup> Pada makalah ini penilaian kritis akan diterapkan pada ketiga literatur tersebut. Penilaian kritis dilakukan berdasarkan *validity, importance* dan *applicability* yang dirangkum pada tabel 3.

**Tabel 3. Critical appraisal evidence based surgery**

	Kriteria	Yiotakis dkk <sup>15</sup>	Bosraty dkk <sup>16</sup>	Oliveira dkk <sup>17</sup>
	Apakah dilakukan randomisasi terhadap pemilihan intervensi terhadap pasien dan apakah proses randomisasi dirahasiakan	Tidak	Tidak	Tidak
	Apakah semua pasien diikutsertakan dalam studi?	Ya	Ya	Ya
	Apakah evaluasi lanjutan ( <i>follow-up</i> ) sudah cukup?	Ya	Ya	Tidak
	Apakah semua pasien dianalisa berdasarkan prinsip <i>intention-to-treat</i> ?			
<i>Validity</i>	Apakah peneliti di"buta"kan terhadap pilihan intervensi?	Tidak	Tidak	Tidak
	Apakah karakteristik kelompok pasien serupa pada awal studi?	Ya	Ya	Ya
	Di luar intervensi yang diberikan, apakah kelompok-kelompok yang diteliti mendapat perlakuan yang sama?	Ya	Ya	Ya
<i>Importance</i>	Seberapa besar efek intervensi?	Ya	Ya	Ya
	Seberapa tinggi presisi estimasi efek intervensi?	Ya	Ya	Ya
	Apakah pasien dalam studi ini serupa dengan pasien pada sentra praktek saya?	Ya	Ya	Ya
<i>Applicability</i>	Apakah keluaran pada studi ini bersifat relevan secara klinis?	Ya	Ya	Ya
	Apakah kemampuan bedah saya serupa dengan ahli bedah pada studi ini?	-	-	-

### Analisis literatur

Analisis pada ketiga jurnal tersebut memberikan hasil validitas yang rendah oleh karena tidak dilakukannya randomisasi dan tidak adanya proses “blinding” yang dapat mengurangi bias pada studi. Dalam kasus ini, pertanyaan klinis tidak dapat dijawab bila dilihat dari analisis *evidence based surgery*. Kasus-kasus bedah sulit untuk dilakukan randomisasi dan pemilihan terapi pembedahan selalu melihat setiap kasus dan tidak dapat disama-ratakan. Meskipun pertanyaan klinis tidak terjawab, namun terdapat hal yang menarik pada studi yang dilakukan oleh Bosraty dkk<sup>16</sup> dan Yiotakis dkk<sup>15</sup> Bosraty dkk<sup>16</sup> melakukan penilaian terhadap komponen keluaran berdasarkan residu dan rekurensi serta morbiditas berdasarkan komponen kematian, jumlah kehilangan darah, jumlah darah yang ditransfusikan, lama perawatan di ruang rawat intensif, lama rawat inap, serta kebutuhan tampon

posterior dan didapatkan hasil yang bermakna ( $p < 0,05$ ) pada komponen kehilangan darah, jumlah darah yang ditransfusikan, lama perawatan di ruang rawat intensif serta lama rawat inap. Hal yang serupa juga didapatkan oleh Yiotakis dkk,<sup>15</sup> yaitu komponen jumlah kehilangan darah dan lama rawat inap terlihat berbeda cukup bermakna (tanpa dilakukan perhitungan nilai p). Didapatkan jumlah kehilangan darah pada kasus yang dilakukan pembedahan endoskopik rata-rata sebanyak 248,8 cc, sedangkan pada kasus dengan pembedahan *midfacial degloving* rata-rata 880 cc dan transpalatal 925 cc. Lama rawat inap rata-rata pada kasus dengan pembedahan endoskopik sebanyak 2 hari, sedangkan pada kasus dengan pembedahan *midfacial degloving* dan transpalatal rata-rata sebanyak 4,4 hari dan 6,8 hari. Adapun rangkuman karakteristik dari ketiga jurnal dapat dibaca pada tabel 4.

**Tabel 4. Perbandingan karakteristik studi oleh Yiotakis dkk<sup>15</sup>, Bosraty dkk<sup>16</sup> dan Oliveira dkk<sup>17</sup>**

Karakteristik	Oliveira dkk (2012)	Bosraty dkk (2011)	Yiotakis dkk (2008)
<b>Jumlah pasien</b>	37 pasien	42 pasien	20 pasien
<b>Usia rata-rata</b>	17 ± 7 th (8-44 th)	13 ± 2,1 th (6-21 th)	14,9 th (12-18 th)
<b>Gejala utama</b>	Epistaksis (96,8%) Sumbatan hidung (87,8%)	-	Sumbatan hidung (97%) Epistaksis (65%)
<b>Arteri yang memperdarahi</b>	a. maksilaris	-	a. maksilaris (6 kasus) a. sfenopalatina (2 kasus)
<b>Stadium</b>	<b>Fisch</b> Stadium I : 1 (3%) Stadium II : 23 (62%) Stadium III: 9 (24%) Stadium IV: 4 (11%)	<b>Fisch</b> Stadium II : 9 Stadium IIIa: 17 Stadium IIIb: 16	<b>Radkowski</b> Stadium Ia : 3 Stadium Ib : 3 Stadium IIa: 3 Stadium IIb: 8 Stadium IIc: 3
<b>Embolisasi preop</b>	5 ± 3 hari (1-14 hari)	3 hari preop	2,5 hari preop (hanya pada 12 pasien)
<b>Metode</b>	Studi retrospektif ( <i>cohort crosssectional</i> )	Studi retrospektif ( <i>follow up</i> min 3 tahun)	Studi retrospektif ( <i>follow up</i> min 12 bulan)
<b>Pembagian grup</b>			
Pembedahan endoskopik	20	13	9
Pembedahan terbuka	17	29	11
<b>Lama pembedahan(menit)</b>	<b>(p &lt; 0,00012)</b>		
Pembedahan endoskopik	129,75 ± 34,7	-	107,7
Pembedahan terbuka	272,35 ± 75,93		> 200

## LAPORAN KASUS 1

Seorang pasien laki-laki usia 15 tahun, rujukan dari dokter spesialis THT dengan diagnosis kerja suspek angiofibroma nasofaring. Keluhan hidung tersumbat sisi kiri disertai dengan mimisan dari hidung sisi kiri yang berulang sejak 4 tahun yang lalu. Pasien tidak mengeluhkan sakit kepala, telinga rasa tertutup, telinga berdenging, benjolan di leher maupun pandangan dubel.

Pada pemeriksaan fisik, pasien tampak sakit sedang, tanda-tanda vital stabil, dan tidak tampak pucat. Pada pemeriksaan nasoendoskopi, pada kavum nasi kiri, tampak kavum nasi lapang, konka inferior eutrofi, konka media eurofi, tampak massa kemerahan, berbentuk lobul dengan permukaan licin di belakang konka media, tidak terdapat septum deviasi maupun sekret. Pada pemeriksaan TK didapatkan lesi soliter berbatas tegas melekat pada dinding lateral hidung sisi kiri, dan dinding anterior sinus sfenoid kiri, perselubungan dengan densitas cairan pada sinus maksila kiri dan sinus etmoid anterior kiri.

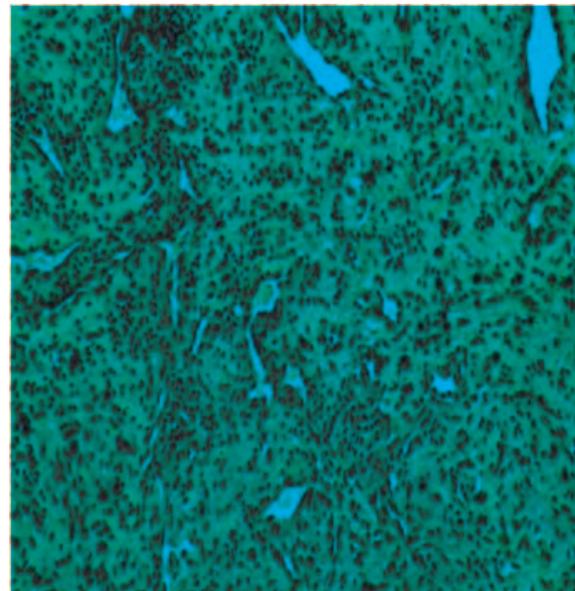
Pasien kemudian direncanakan operasi dengan pendekatan nasoendoskopi bersama dengan Divisi Onkologi THT dan persiapan pendekatan terbuka jika terjadi perdarahan yang mengganggu lapang pandang endoskop. Operasi dipersiapkan pada tanggal 28 Februari 2012 dengan persiapan ruang rawat intensif pasca operasi serta persiapan transfusi darah merah 2500 cc dan plasma beku 750 cc.

Operasi ekstirpasi massa dengan nasoendoskopi dilakukan dalam anestesi umum. Pada nasoendoskopi untuk identifikasi tumor, tampak massa kemerahan dengan permukaan licin di kavum nasi kiri, menutup bagian inferior rongga hidung sampai tepi bebas prosesus uncinatus dan menutup seluruh koana. Dilakukan antrostomi meatus medius yang diperluas ke arah fontanel posterior hingga tampak dinding posterior sinus maksila untuk mencapai foramen sfenopalatina. Mukosa dinding lateral dielevasi sampai tampak arteri sfenopalatina lalu dilakukan *clipping artery*. Dilakukan pembebasan tumor secara tumpul dengan respatorium pada bagian medial,

lateral dan posterior dari tumor. Tumor terangkat dalam beberapa bagian, kemudian perdarahan masif diatasi dengan kauter. Perdarahan berhenti setelah sisa tumor yang melekat pada foramen sfenopalatina diangkat seluruhnya. Pemasangan *surgicell*<sup>®</sup> dan spongostan dilakukan pada tempat perlekatan tumor. Operasi ditutup dengan pemasangan *netcell* sebanyak dua buah pada kavum nasi kiri. Total perdarahan selama operasi sebanyak 2000 cc.

Pemeriksaan hemoglobin pasca operasi 8,8 g/dl, terjadi penurunan dibanding pra-operasi 12 g/dl, sehingga diputuskan untuk diberikan tambahan transfusi sel darah merah sebanyak 700 cc. Pasca transfusi, didapatkan hasil laboratorium darah hemoglobin 10,5 g/dl. Hari ke-3 pasca operasi, tampon hidung diangkat, tidak ada perdarahan. Hasil pemeriksaan PA sediaan operasi sesuai dengan angiofibroma.

Perawatan pasca operasi dilakukan 1 kali seminggu selama 4 minggu, selanjutnya kontrol 4 minggu sekali. Pada evaluasi 9 bulan pasca operasi, tidak didapatkan residu tumor, *artery clip* utuh, terlihat pada dinding posterior maksila, 5 mm lateral dari krista etmoidalis.



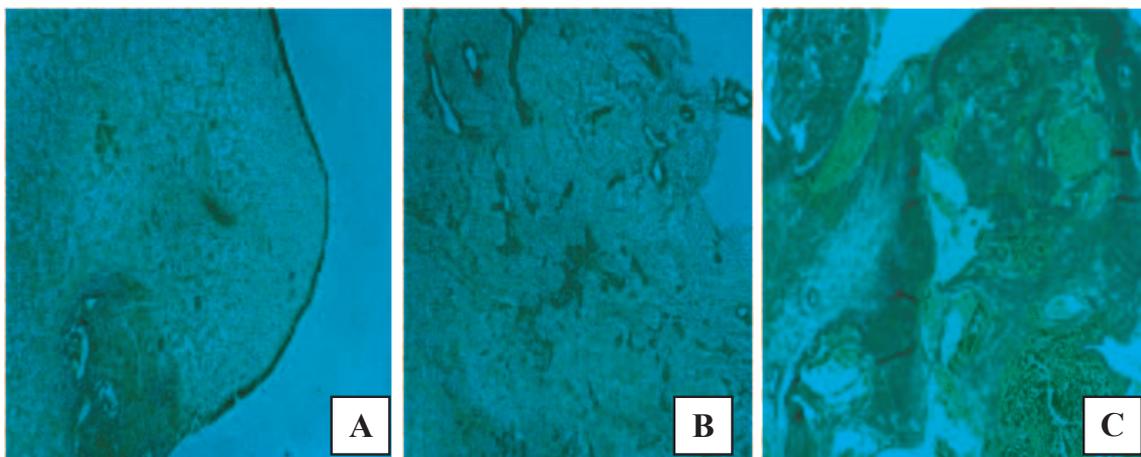
**Gambar 1. Kasus 1. Angiofibroma.** Massa tumor terdiri atas komponen jaringan ikat dengan sel berbentuk spindel, bulat dan stellata. Tampak pembuluh darah berdinding tipis dalam berbagai ukuran

## LAPORAN KASUS 2

Seorang pasien laki-laki usia 13 tahun sejak 1 bulan yang lalu pilek dengan ingus kental terus menerus sejak 1 bulan, diikuti dengan telinga kiri terasa penuh dan tersumbat sejak 3 minggu. Sejak 1 minggu ingus berbau dan membuat pasien datang berobat ke dokter spesialis THT. Riwayat perdarahan dari hidung atau ingus bercampur darah disangkal oleh pasien. Setelah pemeriksaan pasien dianjurkan untuk menjalani pemeriksaan TK dan dirujuk ke RSCM. Pada pemeriksaan nasoendoskopi, tampak massa memenuhi rongga hidung kiri tertutup oleh fibrin tebal, dan setelah pemasangan tampon adrenalin 1/5000 dan gel xylocaine, tampak massa dengan permukaan rapuh berwarna keunguan dan mudah berdarah. Pemeriksaan TK menunjukkan gambaran massa jaringan lunak dengan densitas heterogen, terdapat klasifikasi terutama yang memenuhi sinus maksila kiri, serta tampak destruksi dinding medial sinus maksila kiri, perselubungan pada sinus etmoid anterior, posterior dan frontal kiri. Penjelasan *informed consent* diberikan pada pasien dan keluarganya mengenai dugaan diagnosis angiofibroma, serta risiko dilakukannya biopsi pada lesi tersebut. Biopsi dilakukan pada tanggal 11 Mei 2012, pasca biopsi dipasang tampon hidung *netcell*, dan tampon diangkat pada hari ke-3, tanpa perdarahan. Hasil PA biopsi tanggal 14 Mei 2012 menunjukkan keping jaringan berlapis epitel torak bertingkat bersilia, dengan jaringan tumor pada stroma yang terdiri atas proliferasi jaringan ikat berinti bulat, oval, *spindle* serta proliferasi pembuluh darah

berbagai ukuran yang pada umumnya berding tipis, tidak tampak tanda ganas, dan mengesankan suatu gambaran angiofibroma. Ditegaskan diagnosis kerja sebagai ANB.

Ekstirpasi tumor dilakukan secara trans-nasal dengan panduan endoskop pada tanggal 29 Mei 2012. Massa tumor yang rapuh dan mudah berdarah dicecilkan ukurannya dengan kauterisasi pada bagian tengah tumor sehingga tampak perlekatannya pada dinding lateral hidung, di area foramen sfenopalatina. Kauterisasi dilanjutkan sehingga seluruh perlekatan bebas, dan tumor dapat diangkat seutuhnya. Tampak bagian massa yang menghancurkan dinding medial sinus maksila, dengan gambaran makroskopik menyerupai polip, kistik dan tidak berdarah mengisi penuh seluruh rongga sinus maksila. Secara umum, pada pengamatan makroskopik tampak perbedaan dari bagian tumor yang melekat pada dinding lateral hidung dan di dalam rongga hidung dengan tumor yang terdapat di dalam sinus maksila. Perdarahan selama operasi 1000 cc, Hb pra-operasi 14,0 g/dl sedangkan pasca operasi 12,7 g/dl, sehingga tidak memerlukan transfusi darah. Pemeriksaan PA sediaan operasi menunjukkan keping jaringan berbentuk polipoid, berlapis epitel torak bertingkat bersilia yang sebagian erusif, stroma sembab, bersebaran sel radang menahun. Tampak proliferasi pembuluh darah berukuran sedang, stroma sebagian berdegenerasi mikroid dengan sel-sel fibroblas reaktif, tidak tampak tanda ganas. Kesimpulan: polip edematosa disertai hemangioma kapilare dan kavernosum.



**Gambar 2. Polip edematosa disertai hemangioma kapilare dan kavernosum** (A) Jaringan berbentuk polipoid berlapis epitel torak bertingkat bersilia. (B) Tampak proliferasi pembuluh darah, pada umumnya berukuran kecil dan pada area lainnya tampak pula beberapa pembuluh darah berukuran besar (C)

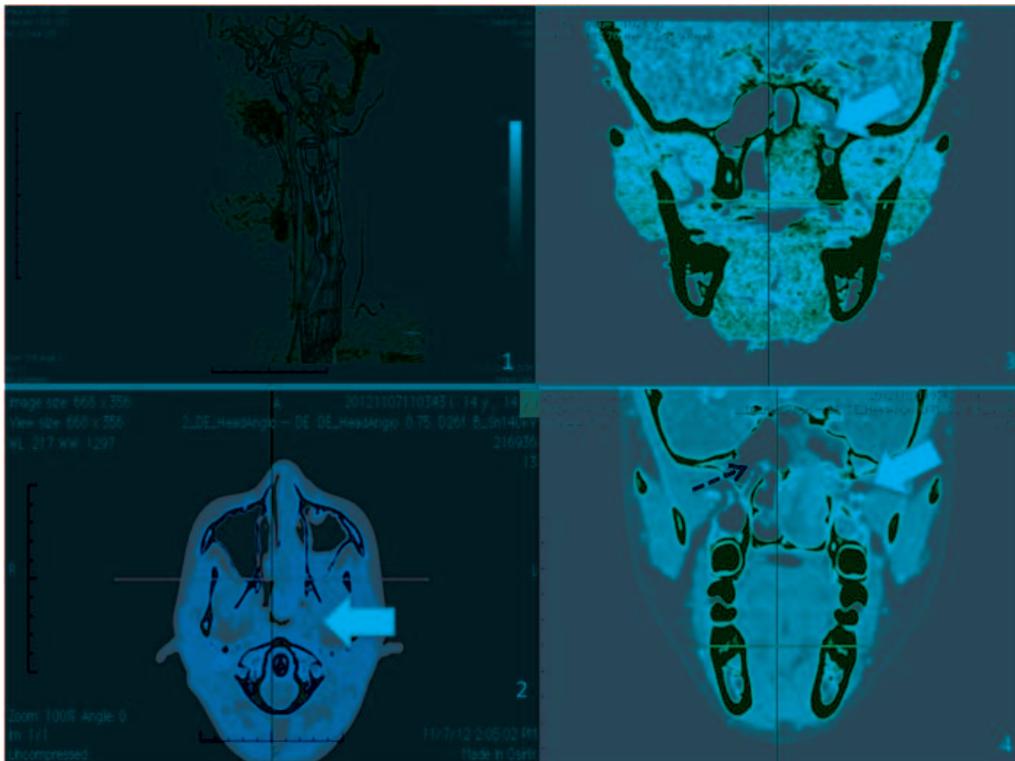
Pengangkatan tampon dilakukan pada hari ke-2 pasca operasi, dan evaluasi pasca operasi dilakukan sampai dengan minggu ke-4 dalam 2 kali kontrol di poliklinik. Evaluasi 6 bulan pasca operasi, mukosa utuh dan normal, ostium sinus maksila terbuka, mukosa foramen sfenopalatina utuh, tidak tampak tumor.

### LAPORAN KASUS 3

Laki-laki umur 14 tahun dirujuk dengan epistaksis posterior yang tidak dapat dikontrol dengan pemasangan tampon dan telah dilakukan transfusi darah sebanyak 600 cc di rumah sakit sebelumnya, Hb pasca transfusi 11,2 g/dl. Dilakukan pengangkatan tampon dan evaluasi nasoendoskopi rongga hidung kiri, tampak massa soliter, dengan permukaan licin memenuhi dasar rongga hidung dengan batas anterior konka media dan batas superior 1/3 bawah konka media, batas posterior ada di nasofaring yang bisa terlihat pada nasoendoskopi dari sisi kanan. Tampak sumber perdarahan dari bagian inferior tumor. Dipasang tampon *netcell* yang dibagi 2 pada sisi panjang, dan disisipkan bertumpuk secara horizontal ke arah dasar hidung. Berdasarkan anamnesis dan

pemeriksaan ditegakkan diagnosis kerja ANB serta dilakukan persiapan TK angiografi dan pemeriksaan laboratorium peri-operatif.

Hasil TK angiografi dan analisis dengan piranti lunak OsiriX didapatkan arteri yang memperdarahi ANB adalah arteri faringeal asendens dan arteri sfenopalatina (gambar 1), Tumor melekat pada foramen sfenopalatina, mendestruksi lempeng pterigoid, dinding anterior sinus sfenoid, dan kanal n.vidianus (gambar 2, 3, 4). Kasus ini dan hasil TK didiskusikan melalui surat elektronik dengan Prof. Brent A. Senior, University North Carolina at Chapel Hill; dianjurkan untuk dilakukan embolisasi arteri faringeal asendens dan teknik diseksi ekstrakapsuler dilakukan pada semua perlekatan tumor secara sentripetal melalui akses klasik fontanel posterior sesudah dilakukan unsinektomi dan antrostomi meatus medius yang diperluas, serta dilanjutkan dengan akses tambahan trans-septal dan trans-etmoid. Dianjurkan pula untuk melakukan pengangkatan nervus vidianus (neurektomi vidianus) untuk mencegah tertinggalnya tumor yang melekat pada nervus vidianus dan terjadinya rekurensi pada masa mendatang.



**Gambar 3. Tomografi komputer angiografi dan analisis osiriX kasus 3.** 1. Arteri yang memperdarahi tumor; 2. Perlekatan tumor pada foramen sfenopalatina, batas cairan udara pada sinus maksila; 3. Perluasan ke sinus sfenoid dan destruksi dinding anterior sinus; 4. Destruksi lempeng pterigoid os sfenoid dan kanal vidianus dan kanal vidianus utuh sisi kanan (panah kuning).

Pada tanggal 14 November 2012, dilakukan ekstirpasi tumor secara endoskopik dengan teknik 4-tangan oleh penulis 1 dan 2, diseksi ekstrakapsuler dengan respatorium dikombinasi dengan *cauterization suctioning* pada perlekatan tumor dilakukan melalui 3 akses sesuai petunjuk. Kanal vidianus sudah terdestruksi dan nervus vidianus diangkat bersama tumor dengan kauterisasi monopolar, arteri sfenopalatina dan perdarahan arteriol dikontrol dengan kauterisasi bipolar. Tumor dapat diangkat utuh, ukuran 4x3x1 cm. Lama operasi 4 jam dan perdarahan operasi 150 cc, Hb pre-operasi 8,8 g/dl dan pasca operasi 8,4 g/dl. Pasca operasi, pasien kembali ke bangsal rawat dan tidak memerlukan ruang perawatan intensif. Dilakukan transfusi PRC 500 cc, Hb pasca transfusi 10,2 g/dl. Hasil patologi anatomi sediaan operasi sesuai dengan angiofibroma.

Tampon hidung diangkat di poliklinik rawat jalan Rinologi hari ke-2. Perawatan pasca operasi direncanakan setiap 2 minggu sekali selama 4 minggu, selanjutnya 4 minggu sekali selama 8 minggu, dan selanjutnya 3 bulan sekali dalam tahun pertama.

## DISKUSI

Subjek pada kasus seri ini adalah laki-laki berusia 13–15 tahun. Hal ini sesuai dengan insidens angiofibroma nasofaring, yang terutama terjadi pada laki-laki usia remaja. Keluhan yang membuat pasien datang berobat juga sesuai dengan diagnosis angiofibroma nasofaring yaitu keluhan mimisan yang berulang pada 2 kasus, serta adanya hidung tersumbat unilateral di sisi kiri. Keluhan mimisan pada pasien ini dirasakan makin lama makin sering, dan dalam jumlah perdarahan yang makin lama makin banyak. Kasus ke-2 tidak pernah mengalami perdarahan dari hidung, tetapi beringus dari 2 sisi hidung, hidung tersumbat dan mendengkur secara klinik tidak sesuai dengan gejala angiofibroma dan pada pemeriksaan fisik tidak khas sebagai angiofibroma. Pemeriksaan nasoendoskopi dapat membantu klinisi dalam membuat diagnosis kerja ANB jika tumor tampak sebagai massa soliter dengan permukaan licin seolah-olah seperti bola permainan softball yang “terselip” di antara septum, konka media dan dasar hidung.<sup>2</sup> Hasil pemeriksaan patologi-

anatomi jaringan biopsi menunjukkan gambaran sesuai dengan angiofibroma, sehingga kasus ini diperlakukan sebagai kasus angiofibroma. Namun, hasil pemeriksaan patologi-anatomi sediaan yang diangkat saat operasi menyimpulkan sebagai polip edematosa dan hemangioma kapilare dan kaverosum. Pada pemeriksaan nasoendoskopi pasien ke 1 dan ke-3, pada kavum nasi kiri tampak massa kemerahan, berbentuk lobul dengan permukaan licin di belakang konka media. Hal ini sesuai dengan gambaran umum yang ditemukan pada pemeriksaan nasoendoskopi dengan gambaran kemerahan sebagai tanda hipervaskularisasi atau perdarahan massif dari bagian tumor.<sup>3</sup>

Pemeriksaan TK berguna untuk menentukan stadium tumor berdasarkan perluasannya di rongga hidung dan sinus paranasal. Berdasarkan klasifikasi Fisch, seluruh kasus adalah stadium 2, kasus 1 dan 3 terdapat perluasan ke arah posterior dan mendestruksi dinding anterior sinus sfenoid, sedangkan kasus 2 meluas ke arah anterior, mengisi seluruh sinus maksila dan mendorong dinding anterior sinus maksila.<sup>10,11</sup>

Biopsi dilakukan pada kasus ke-2, karena pada gejala tidak terdapat riwayat perdarahan sedikitpun sesuai dengan karakteristik klinik ANB. Biopsi bukan merupakan kontraindikasi absolut pada ANB, terutama pada kasus-kasus dengan gejala dan tanda klinik yang tidak khas. Pada kasus ke-2, biopsi dengan bantuan nasoendoskopi dilakukan 5 mm dari tepi inferior tumor dari dasar hidung, sehingga tampon hidung anterior bisa dipadatkan ke arah dasar hidung. Biopsi sebaiknya tidak dilakukan di bagian superior tumor karena perdarahan bisa mengalir melalui celah konka media dan dinding lateral hidung ke arah nasofaring. Tampon Bellocque tidak diperlukan pada kasus ini karena tumor sudah menutup koana.

Embolisasi arteri yang memperdarahi ANB tidak selalu dilakukan pada ANB,<sup>13,15</sup> embolisasi preoperatif hanya dilakukan pada kasus ke-3, dan hanya pada sumber perdarahan dari arteri faringeal asendens. Pada kasus ke-3 terdapat dua sumber perdarahan, dari arteri faringeal asendens dan arteri sfenopalatina. Sumber perdarahan dari arteri sfenopalatina pada kasus ke-1 dilakukan

*clipping* sedangkan pada kasus ke-2 dan ke-3 dilakukan kauterisasi bipolar.

Operasi reseksi tumor dilakukan dengan pendekatan bedah sinonasal endoskopi, Operasi dimulai dengan melakukan *clipping* atau kauterisasi pada arteri sfenopalatina dengan melakukan identifikasi dan menelusuri fontanel posterior ke arah perlekatan konka media di posterior rongga hidung (krista etmoidalis). Kontrol perdarahan dilakukan dengan menjamin bahwa seluruh perlekatan harus dibebaskan dengan diseksi ekstrakapsuler dengan melakukan elevasi mukoperiosteum dibantu dengan *cauterization suctioning*, serta tidak boleh dilakukan penarikan pada bagian tumor yang melekat pada dinding rongga hidung. Sesudah diyakini diseksi dilakukan secara lengkap, maka tumor dapat dikeluarkan melalui rongga hidung atau rongga mulut dengan gerakan *smooth and gentle* (tanpa kekerasan). Pendekatan secara endoskopi transnasal memberi akses visualisasi yang baik terhadap tumor, lokasi tumor dan arteri yang mendarahi sehingga diseksi tumor secara lengkap dapat dilakukan. Keberhasilan pengangkatan tumor ini bergantung pada ketelitian dalam diseksi tumor dan kemampuan dalam mengontrol perdarahan.<sup>11-14</sup>

Pemeriksaan berkala pasien ke-1 selama 6 bulan pasca operasi tidak terdapat residu tumor. Pemeriksaan dan evaluasi secara rutin diperlukan pada semua kasus ANB mengingat tingkat rekurensi yang tinggi pada kasus angiofibroma nasofaring. Kecurigaan akan adanya massa yang menyerupai ANB memerlukan konfirmasi melalui TK atau dengan MRI. Rekurensi pada daerah kanal vidianus harus dicegah dengan melakukan pengangkatan nervus vidianus bersamaan dengan diseksi tumor,<sup>18</sup> dan pembuktiannya memerlukan tindak lanjut jangka panjang dan analisis mendalam pada setiap kasus rekurensi ANB.

Telah dipresentasikan 2 kasus ANB dan 1 kasus yang secara klinis dan pemeriksaan biopsi didiagnosis sebagai ANB namun hasil konfirmasi patologi anatomi jaringan operasi menunjukkan hemangioma kapilare dan kavernosum. Penatalaksanaan yang dilakukan adalah ekstirpasi tumor dengan bedah sinonasal

endoskopik. Saat ini, nasoendoskopi merupakan pemeriksaan standar untuk rongga hidung di klinik THT, dan kami mendapatkan perbedaan secara klinis antara ANB, hemangioma serta polip. Ahli subspecialisasi Rinologi dengan sangat berhati-hati beranjak menggunakan teknik bedah sinonasal endoskopik untuk ekstirpasi tumor jinak vasokuler. Persiapan pembedahan harus dilakukan dengan seksama untuk melakukan seleksi kasus dan perencanaan pembedahan. Bantuan kemajuan teknologi pemrograman untuk analisis tomografi komputer, sangat menunjang persiapan ini. Pelaksanaan pembedahan juga melibatkan ahli Onkologi THT-Bedah Kepala Leher agar dapat diaplikasikan teknik bedah endoskopik 4-tangan (*four hand technique*) pada kasus-kasus tumor sinonasal jinak maupun ganas.

#### DAFTAR PUSTAKA

1. Duvvuri U, Carrau RL, Kassam AB. Vascular tumors of the head and neck. In: Bailey BJ, Johnson JT, Newlands SD, editors. Head & neck surgery – otolaryngology. 4th ed. Philadelphia : Lippincott Williams & Wilkins; 2006. p. 1811 – 25.
2. Garca MF, Yuca SA, Yuca K. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma. Eur J Gen Med 2010; 7(4):419-25.
3. Nicolai P, Schreiber A, Villaret AB. Juvenile angiofibroma : evolution of management. Int J Pediatr 2012; 412545:1-11.
4. Pauli J, Gundelach R, Vanelli-Rees A, Rees G, Campbell C, Dubey S, et al. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: an immunohistochemical characterisation of the stromal cell. Pathology 2008; 40 (4):396-400.
5. Frympas G, Konstantinidis I, Constantinidis J. Endoscopic treatment of juvenile nasopharyngeal angiofibroma. Eur Arch Otorhinolaryngol 2012; 269(2):523-9.
6. Nicolai P, Villaret AB, Farina D, Nadeau S, Yakirevitch A, Berlucchi M, et al. Endoscopic surgery for juvenile angiofibroma : a critical review of indications after 46 cases. Am J Rhinol Allergi 2010; 24(2):e67-72.
7. Tang IP, Shasinder S, Gopala KG, Narayanan P. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma in a tertiary centre: ten-year experience. Singapore Med J 2009; 50(3):261-4.
8. Karydes HC, Bailitz JM. An unusual case of epistaxis – juvenile nasopharyngeal angiofibroma. J Emerg Med 2012; 43(4):e231-3
9. Nongrum HB, Thakar A, Gupta G, Gupta SD. Current

- concepts in juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *J ENT Masterclass 2009*; 2(1):88-95.
10. Pradhan B, Thopa N. Juvenile angiofibroma and its management. *Nepal Med Coll J 2009*; 11(3):186-9.
  11. Llorente JL, Lopez F, Suarez V, Costales M, Suarez C. Evolution in the treatment of juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Acta Otorhinolaryngol Esp 2011*; 6(2):279-86.
  12. Enepekides DJ. Recent advances in the treatment of juvenile angiofibroma. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg 2004*; 12:495-9.
  13. El-Banhawy, Ragab A, El-Sharnoby MM. Surgical resection of type III juvenile angiofibroma without preoperative embolization. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2006*; 70:1715-23.
  14. Sharkawy AA, Elmorsy SM. Transnasal endoscopic management of recurrent juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2011*; 75:620-3.
  15. Yiotakis I, Eleftheriadou A, Davilis D, Giotakis E, Ferekidou E, Korres E, et al. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma stages I and II: a comparative study of surgical approaches. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2008*; 72:793-800.
  16. Bosraty H, Atef A, Aziz M. Endoscopic vs open surgery for treating large, locally advanced juvenile angiofibromas: a comparison of local control and morbidity outcomes. *Ear Nose Throat J 2011*; 90(11): 529-34.
  17. Oliveira JAA, Tavares MG, Aguiar CV, Azevedo JF, Sousa JRF, Almedia PC, et al. Comparison between endoscopic and open surgery in 37 patients with nasopharyngeal angiofibroma. *Braz J Otolaryngol 2012*; 78(1):75-8.
  18. Senior BA. Email correspondence of angiofibroma case of Mr. EA. University of North Carolina at Chapel Hill; 2012.

## LAMPIRAN

**Tabel 1. Klasifikasi berdasarkan Fisch<sup>10,11</sup>**

Stadium	
I	Tumor terbatas pada rongga nasofaring tanpa disertai dengan destruksi dari tulang atau terbatas pada foramen sfenopalatina
II	Tumor menginvasi fossa pterigomaksila atau sinus maksila, sfenoid dan etmoid dengan disertai destruksi tulang
IIIa	Tumor menginvasi fossa infatemporal atau regio orbita dengan keterlibatan intrakranial
IIIb	Stadium IIIa dengan keterlibatan ekstradural (paraselar)
IVa	Tumor intrakranial intradura tanpa infiltrasi pada sinus kavernosus, regio kiasma optikum dan atau fossa pituitari
IVb	Tumor intrakranial intradura dengan infiltrasi pada sinus kavernosus, regio kiasma optikum dan atau fossa pituitari

**Tabel 2. Klasifikasi berdasarkan Radowski<sup>9,12</sup>**

Stadium	
Ia	Tumor terbatas di hidung dan/atau nasofaring
Ib	Tumor di hidung dan atau nasofaring dengan ekstensi ke satu atau lebih sinus paranasal
IIa	Ekstensi minimal melalui foramen sfenopalatina, masuk dan memenuhi sebagian sisi medial dari fosa pterigomaksila
IIb	Tumor memenuhi fosa pterigomaksila mendorong dinding posterior antrum maksila ke depan; kesalahan letak dari cabang-cabang arteri maksila anterior dan/atau lateral; ekstensi superior dapat terjadi dengan erosi ke tulang orbita
IIc	Ekstensi melalui fosa pterigomaksila ke dalam pipi, fosa temporal atau posterior lempeng pterigoid
IIIa	Erosi ke dasar tengkorak dengan ekstensi intrakranial minimal
IIIb	Erosi ke dasar tengkorak dengan ekstensi intrakranial ekstensif dengan atau tanpa invasi ke sinus kavernosus