



Angiomatous Nasal Polyp: Laporan Kasus dan Pembahasan Literatur

David Herryanto¹, Greatavia Meanda Leslie², Fernando Heri Kristanto³

Rumah Sakit Bethesda Yogyakarta, Indonesia

Email: Davidherryanto3@gmail.com

ABSTRAK

Kata Kunci: Polip Angiomatous Nasal; Sinonasal Polyps; Epistaksis

Polip Nasal Angiomatous (ANPs) adalah varian langka dari polip sinonasal inflamatori (ISP), ditandai oleh pertumbuhan pembuluh darah yang luas. ANPs harus dipertimbangkan dalam diagnosis banding seperti polip antrochoanal, angiofibroma juvenil, keganasan, papiloma, dan hemangioma. Penelitian mengenai ANPs masih sangat terbatas, sehingga penegakan diagnosis memerlukan data klinis, radiologis, dan patologis yang mendalam. Laki-laki 21 tahun datang ke IGD dengan keluhan massa keluar dari hidung kiri selama 5 hari, epistaksis berulang dan hidung tersumbat selama sebulan terakhir. Pemeriksaan fisik menunjukkan massa merah kehitaman yang memenuhi cavitas nasal sinistra. CT scan menunjukkan massa poliposus sinonasal di antrum sinus maxillaris sinistra. Pasien didiagnosis rhinosinusitis kronis dengan polip angiomatous nasal grade 3. Pasien menjalani ekstirpasi massa, dan patologi mengkonfirmasi jaringan mukosa nasal dengan epitel berlapis gepeng dan pembuluh hiperemis. Nasoendoskopi pasca operasi tidak menunjukkan adanya massa polip yang tersisa. ANPs sulit didiagnosis karena gejalanya beragam dan mirip dengan kondisi neoplastik. Patogenesisnya diduga melibatkan gangguan pada pembuluh darah, stasis, edema, dan nekrosis. Evaluasi yang mendalam melalui pemeriksaan klinis, radiologis, dan patologis sangat penting untuk diagnosis dan penanganan yang tepat. Penanganan ANPs umumnya melibatkan ekstirpasi massa, yang menunjukkan hasil baik dan rendahnya kekambuhan. Laporan kasus menunjukkan variasi gejala dan pentingnya evaluasi klinis, radiologis, dan patologis yang mendalam untuk diagnosis yang akurat dan penatalaksanaan yang efektif.

Keywords: Angiomatous Nasal Polyps; Sinonasal Polyps; Epistaxis

ABSTRACT

Angiomatous nasal polyps (ANPs) are a rare variant of inflammatory sinonasal polyps (ISPs), characterized by extensive blood vessel growth. ANPs should be considered in the differential diagnosis such as antrochoanal polyps, juvenile angiofibroma, malignancy, papilloma, and hemangioma. The research on ANPs is still very limited, so establishing a diagnosis requires in-depth clinical, radiological, and pathological data. A 21-year-old male came to the emergency room with complaints of a mass coming out of the left nose for 5 days, recurrent epistaxis and nasal congestion for the past month. Physical examination revealed a blackish red mass that filled the sinistra nasal cavities. CT

scan showed a sinonasal polyposus mass in the antrum of the sinistral sinus maxillaris. The patient was diagnosed with chronic rhinosinusitis with grade 3 angiomatous nasal polyp. The patient underwent mass extirpation, and pathology confirmed nasal mucosal tissue with flattened stratified epithelium and hyperemic vessels. Post-operative nasoendoscopy did not show any remaining polyp masses. ANPs are difficult to diagnose as the symptoms are diverse and similar to neoplastic conditions. The pathogenesis is thought to involve vascular disorders, stasis, edema, and necrosis. In-depth evaluation through clinical, radiologic, and pathologic examination is essential for proper diagnosis and treatment. Treatment of ANPs generally involves mass extirpation, which has shown good results and low recurrence. Case reports demonstrate the variation of symptoms and the importance of in-depth clinical, radiologic, and pathologic evaluation for accurate diagnosis and effective management.

Corresponden Author: David Herryanto

Email: Davidherryanto3@gmail.com

Artikel dengan akses terbuka dibawah lisensi



Pendahuluan

Polip Nasal Angiomatosa (Angiomatous Nasal Polyp/ANPs) adalah subtype polip sinonasal yang cukup langka, ditandai dengan proliferasi pembuluh darah di dalam polip. ANPs ini mencakup 4-5% dari polip sinonasal dan biasanya berkembang akibat perubahan sekunder dari pertumbuhan polip sinonasal yang diikuti gangguan pembuluh darah dan *neovaskularisasi*. Gejala klinis yang umum meliputi hidung tersumbat, epistaksis, anosmia, dan rinorea. Gambaran *CT scan* dapat menunjukkan massa heterogen yang luas. Pemeriksaan patologis akan menampilkan angiogenesis yang meluas, tampilan eosinofil, dan sel stroma atipikal. ANPs sering salah didiagnosis sebagai keganasan atau *angiofibroma nasofaring juvenil (JNA)* karena kemiripannya. Diagnosis yang tepat memerlukan pemeriksaan pencitraan dan temuan patologis. Terapi lini pertama adalah operasi pengangkatan endoskopi transnasal, yang memiliki tingkat kekambuhan rendah (Assiri dkk., 2020; Iemura-Kashiwagi dkk., 2021; Kanagamuthu & Vasudevan, 2024; R dkk., 2024).

Belum banyak penelitian yang tersedia mengenai ANPs, termasuk gejala yang menyerupai berbagai entitas penyakit lain serta *etiopatofisiologinya* yang masih belum diketahui (Ali dkk., 2023; Koo & Lee, 2023; Suryawanshi dkk., 2022; Wang dkk., 2022). Sebagai penyakit yang relatif langka, ANPs seringkali sulit didiagnosis dengan tepat dan bahkan sering diabaikan entitasnya. Dibutuhkan data klinis mendalam, radiologis, dan patologis yang saling melengkapi untuk menegakkan diagnosis yang pasti. ANPs perlu dipertimbangkan ketika menemukan diagnosis banding lainnya seperti polip antrochoanal, angiofibroma juvenile, keganasan, papiloma, dan hemangioma.

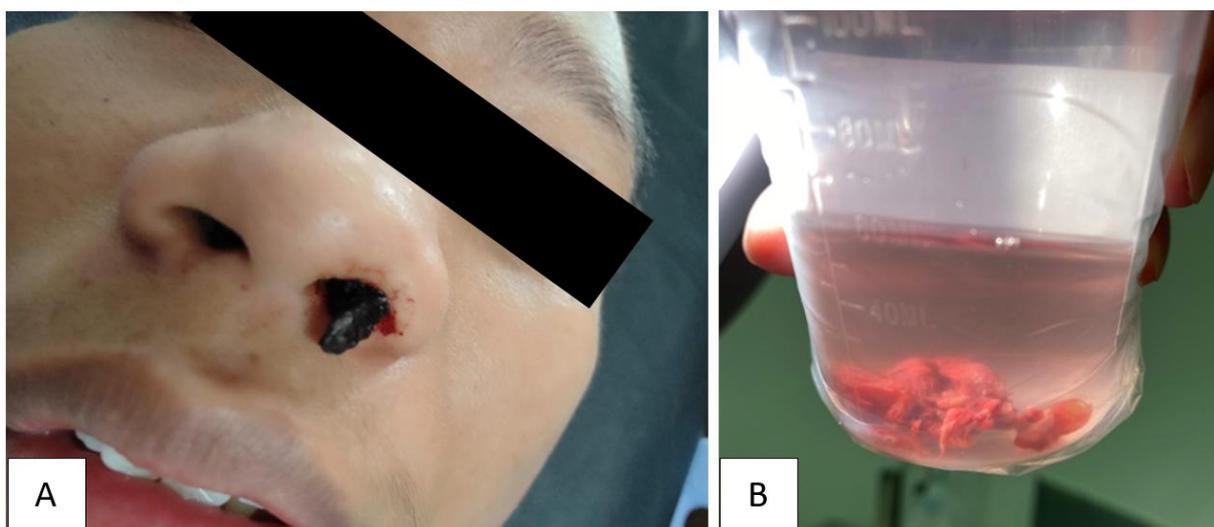
Kebaruan penelitian ini terletak pada dokumentasi mendetail dari presentasi klinis yang tidak biasa dan pendekatan penanganan yang diterapkan pada kasus ini, termasuk analisis radiologis dan patologis yang menunjukkan kompleksitas diagnosis ANPs. Selain itu, penelitian ini memberikan kontribusi penting terhadap literatur dengan menggarisbawahi

pentingnya evaluasi diagnostik multi-disipliner dalam penanganan ANPs, yang jarang dibahas secara komprehensif dalam studi sebelumnya.

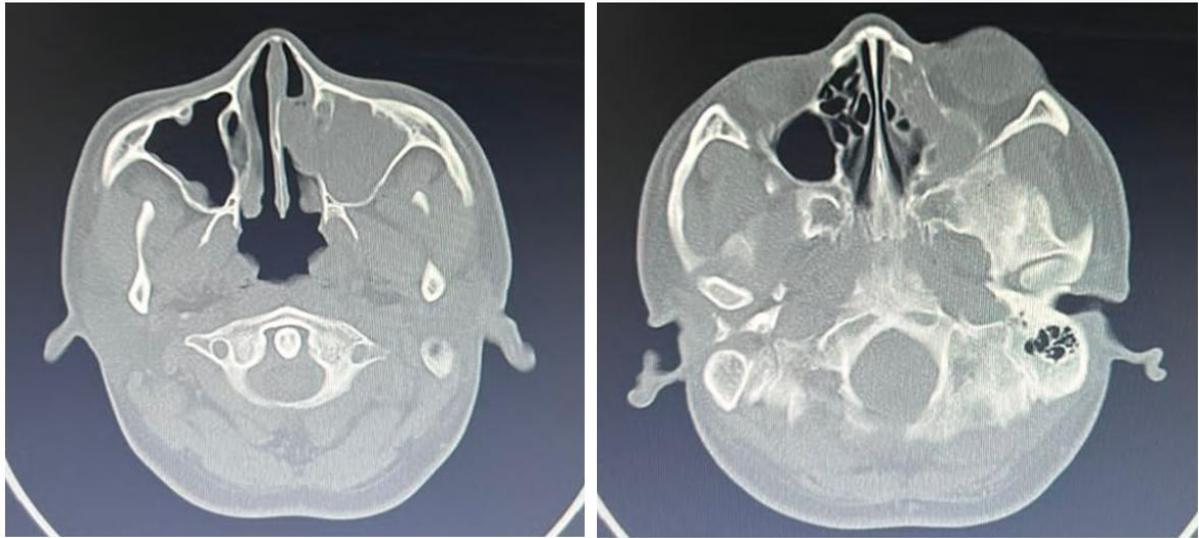
Metode Penelitian

Metode penelitian yang digunakan dalam penelitian ini adalah menggunakan deskripsi kasus. Berikut deskripsi kasusnya: Seorang laki-laki 21 tahun datang ke IGD dengan keluhan massa keluar dari hidung kiri sejak 5 hari yang lalu. Massa lengket seperti jendalan darah. Pasien memiliki riwayat epistaksis berulang dan hidung tersumbat sejak 1 bulan yang lalu dan semakin memberat beberapa hari terakhir. Selain itu, pasien juga mengeluhkan suara sengau dan nyeri kepala sejak 4 hari lalu. Tidak ditemukan adanya riwayat keganasan pada keluarga. Pada pemeriksaan fisik, didapatkan kondisi umum baik, berat badan 70 kg dan tinggi badan 170 cm, tanda vital dalam batas normal. Pada pemeriksaan hidung tampak massa berwarna merah kehitaman yang memenuhi *cavitas nasalis sinistra* menutupi konka, teraba keras dan nyeri saat disentuh. Konka mudah berdarah, disertai sekret mukoid. Pemeriksaan kavum nasal dextra, telinga, dan tenggorok dalam batas normal.

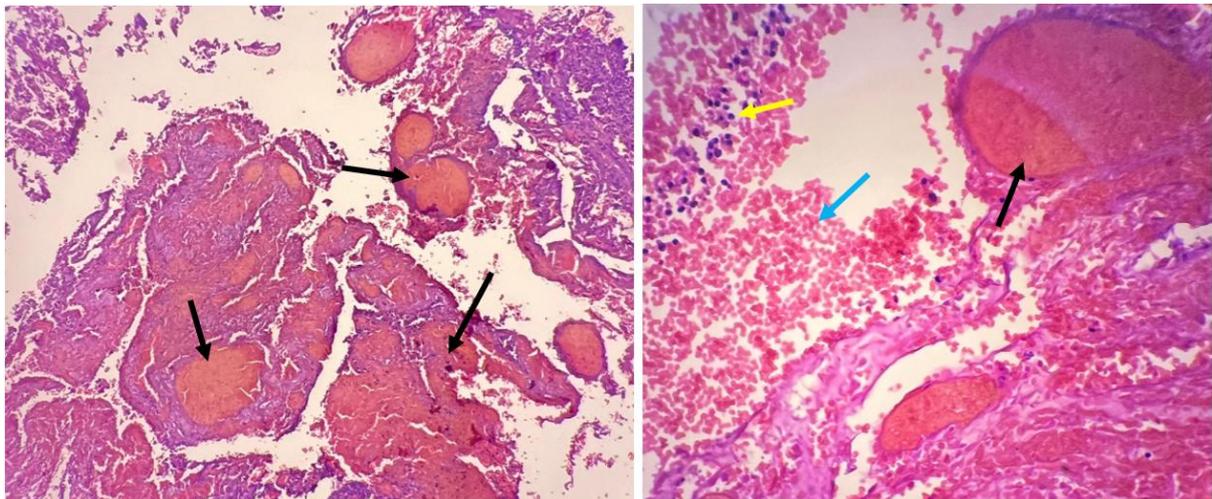
Pemeriksaan CT Scan sinonasal menunjukkan kesan massa suspek poliposis sinonasal dengan gambaran rata memenuhi antrum sinus *maxillaris sinistra* meluas ke sinus *ethmoidales et frontal sinistra* serta *cavum nasi sinistra*, sementara *konka inferior* dan media bilateral tidak tampak hipertrofi. Kesan massa suspek *polyposis* sinonasal. Pemeriksaan laboratorium didapatkan hasil dalam batas normal. Pasien didiagnosis rhinosinusitis dengan polip nasal angiomatosa dan direncanakan untuk ekstirpasi massa dengan narkose umum. Saat durante operasi, tampak massa polip bertangkai berpangkal di meatus media yang mudah berdarah saat disentuh. Ekstirpasi dilakukan dengan cepat, menggunakan *forcep* nasal mengangkat keseluruhan massa, menunjukkan pangkal polip yang tidak melekat terlalu kuat. Perdarahan durante operasi terkontrol sekitar 25ml yang berkurang signifikan ketika massa sudah berhasil diangkat keseluruhan. Pemasangan tampon padat nasal anterior dilakukan selama setelah ekstirpasi dan dipertahankan selama 2 hari. Hasil patologi anatomi menunjukkan gambaran mikroskopik tampak jaringan mukosa nasal dengan permukaan dilapisi epitel berlapis gepeng, stroma jaringan ikat di bawahnya mengandung sel-sel selata dan beberapa pembuluh hiperemis. Satu minggu pasca operasi, pasien kontrol ke poliklinik dengan perbaikan suara sengau tanpa keluhan hidung tersumbat. Pada pemeriksaan *nasoendoskopi* tampak krusta darah minimal disekitar konka media sinistra tanpa sisa polip.



Gambar 1. (A) Pemeriksaan fisik nasal sinistra: massa berwarna merah kehitaman keluar dari kavum nasal kiri, teraba keras dan nyeri saat disentuh. (B) Sampel makroskopis post operasi.



Gambar 2. Pemeriksaan CT-Scan: massa yang memenuhi antrum sinus maxillaris sinistra meluas ke sinus ethmoidales et frontal sinistra serta cavum nasi sinistra



Gambar 3. Hasil patologi anatomi: tampak pembuluh darah kongestif berdilatasi dengan lumen berisi eritrosit (panah hitam), sebaran sel radang kronik dominan limfosit (panah kuning) dan daerah perdarahan ekstravaskular tanpa dibatasi lapisan endotel (panah biru)

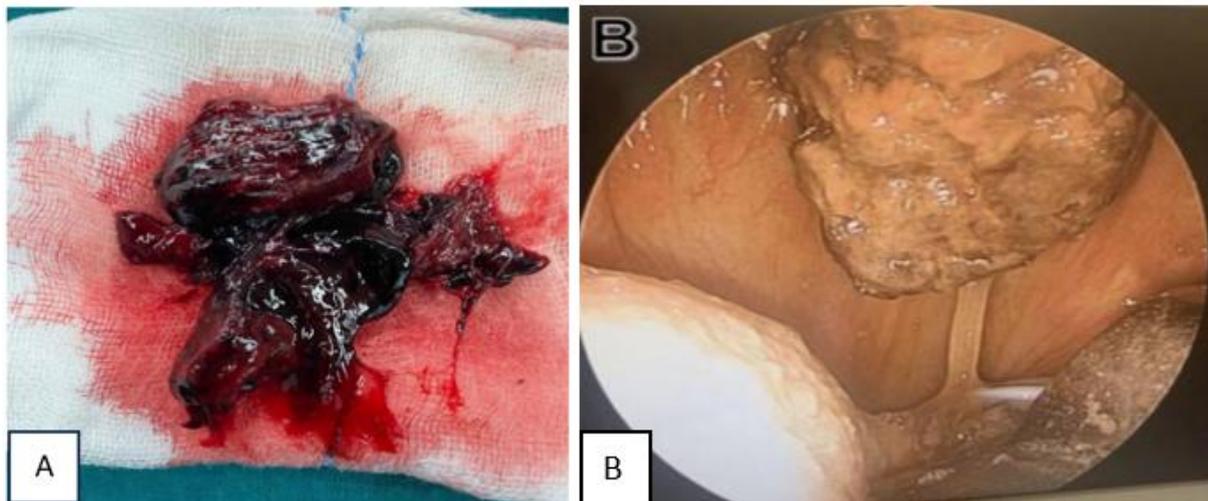
Hasil dan Pembahasan

Inflammatory sinonasal polyps (ISP) dibagi menjadi lima varian utama: polip edematosa, kelenjar, fibrosa, kistik, dan angiomatosa. Secara klinis, penderita ANPs dapat mengalami sumbatan pada rongga hidung secara bertahap, kehilangan sensasi penciuman, keluarnya cairan dari hidung, epistaksis hingga *exophthalmosis* dan gangguan penglihatan. Telah diketahui bahwa ANPs adalah lesi jinak yang relatif jarang terjadi ditandai dengan pertumbuhan pembuluh darah yang luas dan ektasia, dengan sel inflamasi yang minim dan fibrin ekstraseluler yang berlebihan. Karena gejala klinis ANPs yang bervariasi dan tidak spesifik. Lesi ini sering kali muncul terlambat, sehingga menyebabkan kesulitan diagnostik dan penatalaksanaan (Assiri dkk., 2020; Kernig & Roth, 2023; Suryawanshi dkk., 2022).

Banyak hipotesis mengenai patogenesis dari ANPs, namun *patogenesis* yang pasti sampai saat ini belum ditemukan. Salah satu hipotesis menyatakan bahwa ANPs muncul dari polip sinus maksilaris/cavum nasi yang mengalami gangguan pembuluh darah pada pedikel polip

mengakibatkan stasis, *edema*, *iskemia* dan *nekrosis* pada polip. Ada 4 lokasi ekstra-antral yang diketahui rentan terhadap hal ini: pintu keluar ostium, ujung konka *posterior*, *posterior choana* dan area disekitar *nasofaring*. Kompresi pembuluh darah pada area ini dianggap menyebabkan hemangiektasis dan stasis awal serta edema (Brown, 2022). Akibatnya, terjadi infark *vena* dan *neovaskularisasi* polip yang berkelanjutan membentuk oklusi vaskular berulang dan infark. Hipotesis lainnya yaitu berkaitan dengan pembentukan hematoma pada antrum sinus karena berbagai faktor seperti trauma, pembedahan, inflamasi, alergi, aneurisma yang pecah, yang kemudian menyebabkan neovaskularisasi dan fibrosis.

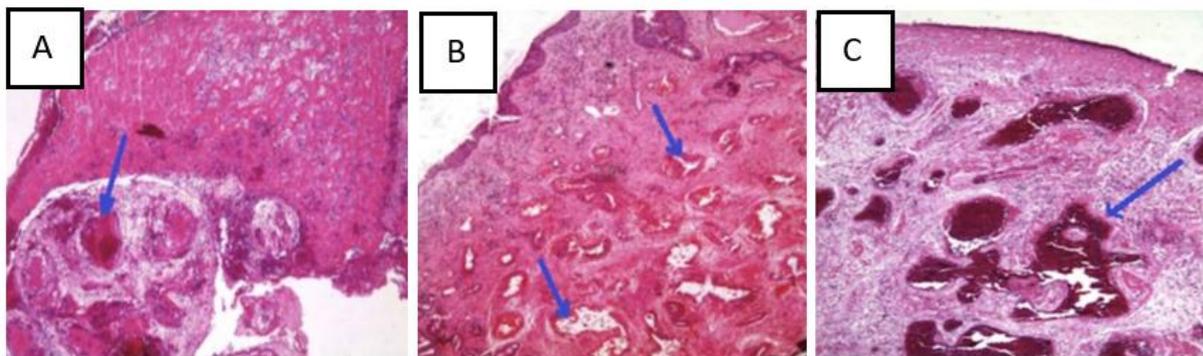
Secara klinis, gejala umum yang dikeluhkan pasien ANPs meliputi hidung tersumbat progresif, kehilangan sensasi penciuman, rinorea, atau epistaksis. Massa polip juga dapat menyebabkan *exophthalmosis* dan gangguan penglihatan, serta gejala lain seperti sakit kepala dan edema wajah. Massa biasanya muncul sebagai massa unilateral, tidak nyeri, lembut dengan konsistensi seperti agar-agar, tembus cahaya, dan *polipoid* di rongga hidung. Laporan kasus oleh Coggins dkk. (2022). melaporkan pasien 16 tahun dengan ANP yang datang dengan keluhan epistaksis berulang dan obstruksi nasal unilateral disertai penurunan berat badan 8 kg dalam beberapa bulan terakhir. Pemeriksaan eksternal hidung tampak normal tanpa deviasi septum atau edema wajah. Pemeriksaan endoskopi menunjukkan massa yang mengisi cavum nasal dan menyebar sampai uvula anterior. Sementara itu, beberapa laporan kasus ANPs oleh Assiri dkk1. mengumpulkan 4 pasien dengan keluhan bervariasi dari discharge nasal, obstruksi nasal kanan, kiri, dan bilateral hingga edema wajah yang dirasakan selama kurang dari 1 tahun. Laporan kasus oleh Bao dkk. (2024) melaporkan keluhan hidung tersumbat, rinorea fulvous, sakit kepala, hiposmia ringan, dan epifora sisi kanan, tanpa epistaksis. Pada kasus kami, pasien memiliki riwayat epistaksis berulang dan hidung tersumbat selama 1 bulan terakhir, disertai nyeri kepala beberapa hari sebelum pemeriksaan, tanpa pembengkakan wajah atau rinorea. Laporan kasus darurat oleh Dhingra dkk. melaporkan pasien ANPs dengan perdarahan hebat dari cavitas nasal kanan, penurunan tekanan darah, dan syok yang memerlukan perawatan ICU. Pemeriksaan endoskopi menunjukkan gumpalan darah tebal dan massa polipoid di rongga hidung kanan.



Gambar 4. Gambaran makroskopis: (A) Case report oleh Dhingra, dkk4: massa polipoid kemerahan dan banyak jendalan darah (B) Case report oleh Coggins, dkk2: Foto nasofaryngoscopy ANP terletak pada posterior uvula dengan massa nekrotik meluas hingga posterior oropharing hingga uvula

Pada laporan kasus ini, penemuan mikroskopis mengkonfirmasi jaringan angiomatous nasal polyp dengan adanya fragmen jaringan ikat dengan lapisan epitel pseudostratifikatum, stroma edematous dengan banyak pembuluh darah yang berdilatasi berisi eritrosit, disebut oleh

sel radang limfosit, neutrofil dan eosinofil. Laporan kasus oleh Assiri dkk. (2020). menunjukkan Permukaan lesi mengalami ulserasi dengan area yang dilapisi oleh epitel pernapasan bersilia pseudostratifikasi dengan metaplasia skuamosa. Pembuluh darah ber dinding tipis terdeteksi pada hampir semua kasus; bentuknya tidak teratur dan dikelilingi oleh material ekstraseluler eosinofilik negatif berwarna merah Kongo yang luas. Trombus fibrin juga ditemukan di beberapa lumina pembuluh darah. Stroma tersebar dengan sel spindle yang tidak beraturan, dan ruang pembuluh darah ditutupi oleh sel endotel (Gambar A dan B). Sel-sel stroma atipikal membesar dengan inti vesikular, nukleolus yang menonjol, dan sitoplasma eosinofilik. Terdapat area pembuluh darah tipe kavernosus dan zona vaskular yang bergantian. Degenerasi kistik juga ditemukan di dalam proyeksi pseudopapiler yang dilapisi oleh endotel. Pada gambar C ditemukan gambaran polip hidung angiektatik yang khas dan trombosis vaskular (Ali dkk., 2023; Coggins dkk., 2023).



Gambar 4. Gambaran Mikroskopis: (A) Case report 1-3 oleh Assri, dkk2: jaringan vaskular berukuran kecil dengan dilapisi oleh satu lapis sel endotel ectatic tipis (panah biru) dan kongesti vaskular foci (C) Case report 4 oleh Assri, dkk1: Fotomikrograf yang menunjukkan polip yang khas angiectatic polip dengan thrombotic vaskular

Dari diagnosis bandingnya, ANPs sulit dibedakan dan tidak spesifik sehingga biasanya meningkatkan pertimbangan beberapa lesi neoplastik dalam diagnosis banding. Manifestasi klinis yang hampir sama seperti epistaksis unilateral dan hidung tersumbat. Secara definisi, kedua poli ini berasal dari sinus maksilaris, meluas melalui ostium maksilaris, dan berlanjut ke arah posterior menuju choanae. Ciri utama yang membedakan ANP dari angiofibroma juvenil adalah bahwa pada angiofibroma juvenile, didapati peningkatan kontras dan juga dapat meluas ke dalam fosa pterigopalatina atau intrakranial. Selain itu, inverted papilloma juga sulit dibedakan dengan ANPs berdasarkan manifestasi klinis, radiologis, dan histologisnya. Salah satu pembeda yang sering digunakan yaitu pada AAP didapati perubahan vaskular yang lebih menonjol. Diagnosis banding lainnya yaitu keganasan, dimana sebenarnya baik lesi ANPs maupun malignant menunjukkan manifestasi klinis berupa perkembangan yang agresif. Kedua lesi ini hampir tidak dapat dibedakan dari pemeriksaan radiologinya kecuali pada ANPs, lesi tidak sampai menginvasi lapisan lemak perifer. Selain itu, pengambilan massa intra-operasi pada ANPs lebih mudah dieksisi, sementara massa malignant umumnya lebih sulit untuk dieksisi.

Penatalaksanaan pada kasus ini dilakukan dengan ekstirpasi langsung dari nasal dan *caldwell luc* yang terbukti tidak menunjukkan kekambuhan serta dapat mengurangi manifestasi klinis secara signifikan pada pasien. Pada kasus ini 19 hari pasca operasi, pasien kontrol ke poli THT-KL dengan perbaikan suara sengau tanpa keluhan hidung tersumbat. Pada pemeriksaan nasoendoskopi tampak kavum nasal dektra dan sinistra lapang, konka media dan inferior eutrofi, meatus media terbuka tidak terdapat massa polip maupun septum deviasi, serta hanya terdapat krusta minimal pada kavum nasal sinistra.

Keterbatasan penelitian ini adalah sifatnya yang berupa studi kasus tunggal, sehingga hasil dan temuan yang diperoleh memiliki keterbatasan dalam hal generalisasi ke populasi yang lebih luas. Selain itu, keterbatasan data longitudinal mengenai pemantauan jangka panjang pasien pasca-operasi membatasi analisis terhadap kemungkinan kekambuhan jangka panjang. Penelitian lebih lanjut dengan jumlah sampel yang lebih besar dan pemantauan jangka panjang diperlukan untuk mendapatkan pemahaman yang lebih komprehensif mengenai ANPs, termasuk faktor risiko kekambuhan dan efektivitas berbagai metode penanganan.

Kesimpulan

Polip sinonasal inflamatori (ISP) terbagi dalam lima varian utama, termasuk polip angiomatous nasal (ANPs) yang jarang terjadi dan ditandai oleh pertumbuhan pembuluh darah yang luas. Gejala klinis ANPs meliputi hidung tersumbat, kehilangan penciuman, rinorea, dan epistaksis. Beberapa kasus menunjukkan exophthalmosis dan gangguan penglihatan. ANPs sering sulit didiagnosis karena gejalanya yang bervariasi dan tidak spesifik, serta kemiripannya dengan kondisi neoplastik lain seperti angiofibroma juvenil dan papilloma inverted. Patogenesis ANPs belum sepenuhnya dipahami, namun diduga melibatkan gangguan pembuluh darah yang menyebabkan stasis, edema, dan nekrosis pada polip. Hipotesis lain menyebutkan pembentukan hematoma pada sinus antrum yang memicu neovaskularisasi dan fibrosis. Penanganan ANPs umumnya melibatkan ekstirpasi massa, yang menunjukkan hasil baik dengan tingkat kekambuhan rendah. Laporan kasus menunjukkan variasi gejala dan menekankan pentingnya evaluasi klinis, radiologis, dan patologis yang mendalam untuk diagnosis yang akurat dan penatalaksanaan yang efektif.

Daftar Pustaka

- Ali, A. A., Sayed, R. H., & Dahy, K. G. (2023). Angiomatous antrochoanal polyp: a rare entity of choanal polyps. *The Egyptian Journal of Otolaryngology*, 39(1), 48. <https://doi.org/10.1186/s43163-023-00411-5>
- Assiri, K. S., Al-Ahmari, M. S., Alshahrani, M. S., Mastor, A., & Elhawary, R. (2020). Clinical and Pathological Features of Angiomatous Nasal Polyps: A Report of Four Cases and Review of Literature. *Cureus*. <https://doi.org/10.7759/cureus.7642>
- Bao, Y., Bian, J., Cheng, C., Han, H., Shen, L., Zhou, S., Zhong, J., & Zhou, M. (2016). Case Report Clinical and pathological features in a case of angiomatous nasal polyp. *Int J Clin Exp Med*, 9(11), 22901–22906.
- Brown, D. (2022). Sinonasal angiomatous polyp. Dalam *Radiopaedia.org*. Radiopaedia.org. <https://doi.org/10.53347/rID-151378>
- Coggins, J. M., Quinlan, B. P., Schmidt, M. L., Wang, R. A., & Hughes, C. A. (2023). Large Angiomatous Nasal Polyp Presents With Epistaxis Imitating Juvenile Nasopharyngeal Angiofibroma. *Cureus*. <https://doi.org/10.7759/cureus.45239>
- Fahmi, A., Irfandy, D., Budiman, B. J., & Novianti, H. (2022). Penatalaksanaan Polip Antrokoana Pada Anak. *Majalah Kedokteran Andalas*, 45(3), 443–453.
- Iemura-Kashiwagi, M., Kikuchi, M., Koyasu, S., Kitada, Y., Sugimoto, A., Haga, H., Nakamoto, Y., Nakagawa, T., & Omori, K. (2021). Angiomatous nasal polyp diagnosed by preoperative imaging and successfully resected by endonasal endoscopic surgery: a case report. *Cureus*, 13(10).
- Kanagamuthu, P., & Vasudevan, A. (2024). Sinonasal Angiomatous Polyp: A Case Report. *Indian Journal of Otolaryngology and Head & Neck Surgery*, 76(2), 2003–2007. <https://doi.org/10.1007/s12070-023-04358-0>
- Kernig, M. L., & Roth, S. H. (2023). Clinical Pathologic Conference Case 2: Polypoid expansile mass within the nasal cavity and nasopharynx. *Oral Surgery, Oral Medicine*,

- Oral Pathology and Oral Radiology*, 135(6), e134–e139.
<https://doi.org/10.1016/j.oooo.2022.11.018>
- Koo, H.-B., & Lee, J.-H. (2023). Angiomatous Polyp Originating From the Inferior Turbinate: A Variant of the Sinonasal Polyp. *Ear, Nose & Throat Journal*, 102(10), NP481–NP482.
<https://doi.org/10.1177/01455613211019709>
- Latham, P., Malaisse, F., Konda Ku Mbuta, A., Razafimanantsoa, T. M., Mabossy-Mobouna, G., Madamo Malasi, F., & Bouyer, T. (2024). Caterpillars and chrysalises eaten in Africa. *Published by Paul Lantham*.
- R, B., N, B., A, Z., R, H., K, H., & J, K. (2024). Sinonasal Angiomatous Polyp: A Case Report and Review of Literature. *Ear, Nose & Throat Journal*.
<https://doi.org/10.1177/01455613241247731>
- Suryawanshi, M., Saindani, S., Bhatta, S., Suryawanshi, R., Sawarkar, S., & Bhola, G. (2022). Angiomatous Nasal Polyp: The Great Emulator—A Case Report. *Indian Journal of Otolaryngology and Head & Neck Surgery*, 74(S3), 4730–4733.
<https://doi.org/10.1007/s12070-021-03040-7>
- Wang, H., Zhou, J., Shi, L., Zhang, C., Li, W., Hu, L., Zhai, C., & Sun, X. (2022). Increased Neutrophil Infiltration and Epithelial Cell Proliferation in Sinonasal Inverted Papilloma Compared to Contralateral Nasal Polyps. *American Journal of Rhinology & Allergy*, 36(5), 583–590. <https://doi.org/10.1177/19458924221091691>