

Endobronşiyal Kitle İzlenimi Veren Bir Trakeobronkopati Osteokondroplastika Olgusu

A Case of Tracheobronchopathia Osteochondroplastica Mimicing Endobronchial Mass

Hilal Ermiş¹, Nazan Şen², Gürcan Erbay³, Emine Tuba Canpolat⁴

¹ İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi Turgut Özal Tıp Merkezi, Göğüs Hastalıkları AD, Malatya

² Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi Adana Uygulama ve Araştırma Merkezi, Göğüs Hastalıkları AD, Adana

³ Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi Adana Uygulama ve Araştırma Merkezi, Radyodiagnostik AD, Adana

⁴ Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi Adana Uygulama ve Araştırma Merkezi Patoloji AD, Adana

ÖZET

Trakeobronkopati osteokondroplastika (TO), etiyojisi tam olarak bilinmeyen, yavaş ilerleyen, submukozal nodüllerle karakterize, benign seyirli ve nadir görülen bir bozukluktur. Literatürde genellikle sporadik olgu olarak bildirilmiştir. Endobronşiyal lezyonlar özellikle sigara öyküsü olan olgularda kötü huylu bir hastalığı düşündürmekle birlikte, nadiren benign karakterli de olabilir. Bu gibi durumlarda bronkoskopik inceleme önem kazanır.

Yetmiş bir yaşında, herhangi bir yakınması olmayan, ağır sigara içicisi erkek hasta, rastlantısal olarak çekilen toraks bilgisayarlı tomografisinde endobronşiyal lezyon şüphesi olması üzerine kliniğimize yönlendirilmiş, yapılan radyolojik ve bronkoskopik bulgular eşliğinde histopatolojik olarak TO tanısı almıştır.

Anahtar sözcükler: bronkoskopi, endobronşiyal lezyon, sanal bronkoskopi, trakeobronkopati osteokondroplastika

ABSTRACT

Tracheobronchopathia osteochondroplastica (TO) is a rare benign disorder with unknown aetiology. The condition is characterized by submucosal nodules progressing slowly. TO usually has been reported in literature as sporadic cases. Although endobronchial lesions are considered as malignancy especially in the presence of smoking history, rarely it may be a benign condition. In this kind of situations bronchoscopic inspection comes into prominence.

Seventy-one year-old man who is asymptomatic and heavy smoker, was admitted to our clinic because of the suspicious endobronchial lesion determined on the thorax computed tomography which was performed incidentally. The diagnosis of TO is confirmed histopathologically accompanied by radiologic and bronchoscopic findings.

Keywords: bronchoscopy, endobronchial lesion, tracheobronchopathia osteochondroplastica, virtual bronchoscopy

GİRİŞ

Trakeobronkopati osteokondroplastika (TO), daha çok büyük hava yollarını tutan ve nadir görülen iyi huylu bir hastalıktır.¹ İlk olarak XX. yüzyılın ortalarında tanımlanmıştır. Gerçek insidansı tam olarak bilinmemekle birlikte, özellikle Kuzey Avrupa ülkelerinde daha yük-

sektir.² Olgular genellikle asemptomatik olup şikayetleri lezyonların lokalizasyonu ve stenozun şiddetine göre farklılık gösterir.³ Bu nedenle TO tanısı daha çok otopsi sırasında konulabilmektedir. Bronkoskopinin ve gelişmiş radyolojik tetkiklerin kullanıma girmesi hastalığın antemortem dönemde tanımlanmasına katkıda bulunmuştur.^{3,4}

Alındığı tarih: 30 Eylül 2009; **Revizyon sonrası alınma:** 28 Aralık 2009; **Kabul tarihi:** 26 Ocak 2010

Yazışma adresi (Address for correspondence): Yard. Doç. Dr. Hilal Ermiş, İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi, Turgut Özal Tıp Merkezi Göğüs Hastalıkları AD Malatya, Tel: 0 (532) 603 46 54; *E-posta:* hilalermis@yahoo.com

© 2010 Türkiye Solunum Araştırmaları Derneği (TÜSAD)

Solunum 2010;12(3): 147–150

Solunum Dergisi'ne www.solunum.org.tr adresinden ulaşabilirsiniz.

Hastalıkların benign ve malign ayırımında görüntüleme yöntemlerinin önemini vurgulamak amacıyla, endobronşiyal lezyon varlığı nedeniyle bronkoskopi yapılan ve rastlantısal olarak TO tanısı alan hastamız, literatür eşliğinde sunulmaktadır.

OLGU

Yetmiş bir yaşında erkek hasta, hipertansiyon ve kronik böbrek hastalığı tanılarıyla tetkik edilirken çekilen toraks bilgisayarlı tomografisinde (BT) sol ana bronşta endobronşiyal lezyon görülmesi üzerine kliniğimize yönlendirildi. Solunumsal ve sistemik herhangi bir yakınması yoktu. Altmış paket-yıl sigara içmiş ve sekiz yıl önce bırakmıştı. Özgeçmişinde iki kez benign prostat hipertrofisi operasyonu öyküsü vardı ve hipertansiyon nedeniyle valsartan, nifedipin, doksazosin kullanıyordu. Soy geçmişinde özellik yoktu. Fizik muayenesi doğaldı. Tam kan sayımı, biyokimyasal değerleri, tam idrar tetkiki normal sınırlar içerisinde idi. Posteroanterior akciğer grafisi hafif hiperlüsent görünüm dışında olağandı. Solunum fonksiyon testinde restriktif tipte ventilasyon bozukluğu izlendi (FVC% : 62 FEV₁%: 59 FEV₁/FVC: 73 FEF₂₅₋₇₅: 33).

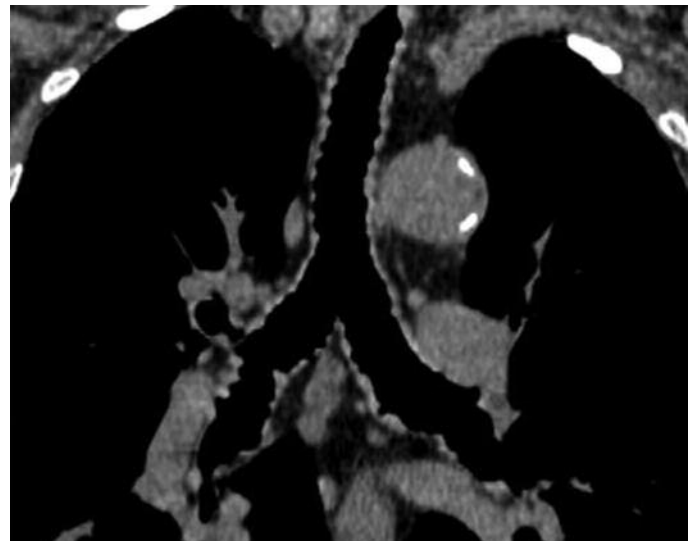
Olgunun toraks BT'sinde trakea ve ana bronşlarda difüz duvar kalınlaşması ve polipoid mukozal kalınlaşmalar, sol ana bronşta polipoid mukozal kalınlaşma nedeniyle yalancı kitlesel lezyon görünümü ve sol alt lob posterior bazalde fokal buzlu cam manzarası mevcuttu. Ayrıca sağ üst lob apikal ve posterior segmentlerde sekel değişiklikler seçildi. Alınan koronal reformat BT görüntülerde ise trakea ve ana bronşlarda nodüler kalınlaşmalar izlendi (**Resim 1**). Hastaya sanal bronkoskopi ile inceleme yapıldı, trakea ve ana bronşlarda polipoid yapılar izlendi ve sol ana bronş ile üst lob bronşların lümenlerinin bu lezyonlar nedeniyle daraldığı görüldü. Trakea posteriorunun korunduğu dikkati çekti (**Resim 2 a-b**). Sigara öyküsü de mevcut olan hastaya, altta yatan herhangi bir malign oluşumun atlanmaması, patolojik ve mikrobiyolojik örnekleme yapabilme amacıyla fiberoptik bronkoskopi (FOB) uygulandı. Trakeal lümen ekspiryumda posterior kısımdan kollebe oluyordu, ana karina künttü. Sağ intermediyer ve orta lob bronş girişleri ile sol ana bronş ve üst lob bronşların ön ve yan duvarlarında lümeneye doğru kabarık, üzeri düzensiz mukoza ile kaplı, sert, bazılarının üzeri beyaz renkli milimetrik polipoid oluşumlar izlendi. Lezyonlar trakeada nadirdi. Alınan bronşiyal lavaj sitolojisi malignite yönünden negatifti ve tüberküloz kültürlerinde üreme olmadı. Bronkoskopik biyopsi materyalinin histopatolojik incelemesinde görülen fibrin bronş mukozal epitel altında ve fragmanlar halinde bir kısmı dejenere kıkırdak dokular, trakeobronkopati osteokondroplastika olarak rapor edildi (**Resim 3**).

TARTIŞMA

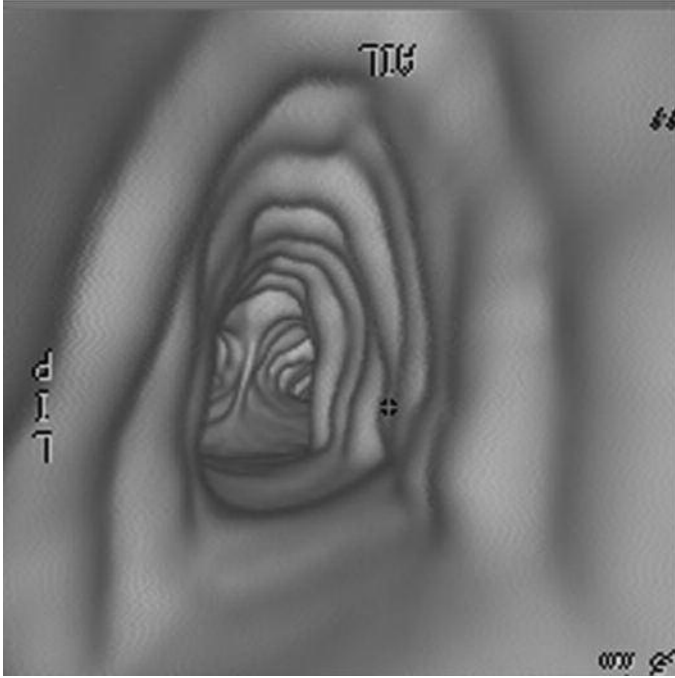
TO, trakea ön ve yan duvarlarından lümen içine daralma yaparak uzanan kemik ve/veya kıkırdak içeren submukozal nodüllerle karakterize, nadir bir bozukluktur. Trakeanın posterior membranöz kısmı tipik olarak tutulmaz.^{3,4} Etiyolojisi kesin olarak bilinmemekle birlikte kimyasal ve mekanik iritasyonlar, silikozis, kronik enfeksiyonlar (özellikle *M. avium*, *M. tuberculosis*, *K. ozaenae*), konjenital ve genetik faktörler sorumlu tutulmuştur.^{3,4,5} Hastamız öykü vermese de, toraks BT'sinde, özellikle sağ üst lobda izlenen sekel lezyonların daha önceden geçirilmiş bir enfeksiyonu destekler nitelikte olduğu düşünüldü.

Olgular genellikle beşinci dekattan sonra tanı alır. İki cinsiyette de eşit oranda görülmekle birlikte bazı yayınlarda erkeklerde daha sık rastlandığı bildirilmiştir.³ TO'nun otopsilerde 1/400 oranında, bronkoskopi uygulanan olgularda 1/125-1/6000 oranında, rastlantısal olarak saptandığı rapor edilmiştir.^{4,5} Hastaların genellikle herhangi bir yakınması olmayıp FOB sırasında veya çekilen toraks BT'lerde rastlantı sonucu fark edilirler. Semptomlar genellikle hastalığın tutulumu ve obstrüksiyonun derecesine göre öksürük, hemoptizi, nefes darlığı, hışıltılı solunum ve sık tekrarlayan akciğer enfeksiyonlarıdır.^{3,4,6} Bizim olgumuz da ciddi solunumsal semptomu olmaksızın yaşamını sürdürmüş ve 71 yaşında rastlantısal olarak tanı almıştır.

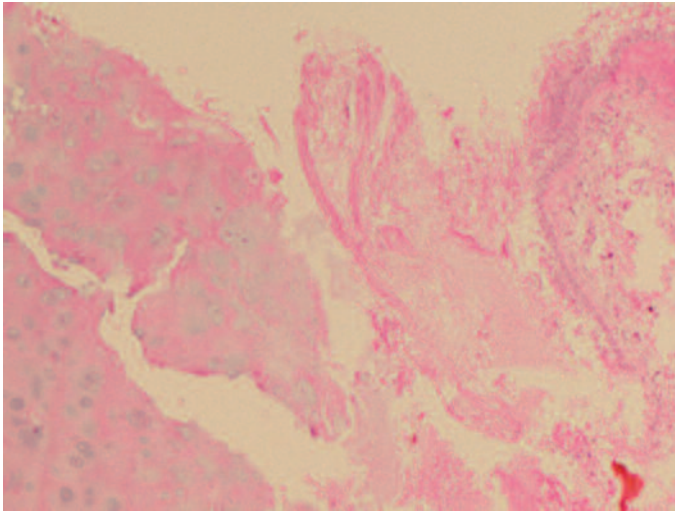
TO'da radyolojik bulgular değişkenlik gösterir. PA ve lateral akciğer grafileri çoğu olguda tanıya katkıda bulunmaz. Bazen atelettazi, postobstrüktif konsolidasyon, trakeal daralma veya nodülerite, yan grafide trakeal ağaçta kalifikasyon izlenebilir.³ Olgumuzun akciğer grafileri normaldi. Tanısal yaklaşımda en yararlı radyolojik inceleme toraks BT ve son yıllarda yaygınlaşan sanal bronkoskopidir. BT ile



Resim 1. Koronal reformat BT görüntülerde trakea ve ana bronşlarda nodüler kalınlaşmalar

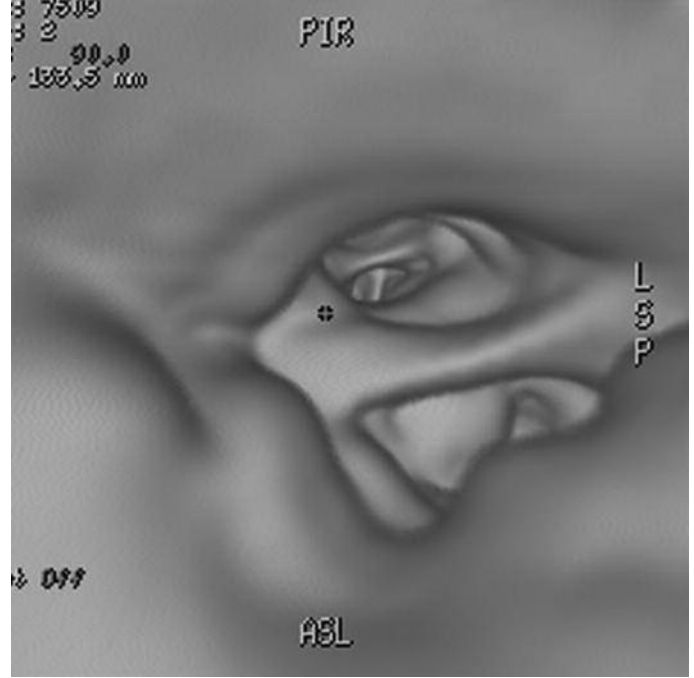


Resim 2 a-b. Multislice BT'de sanal bronkoskopi görüntülerinde trakea ve ana bronşlarda polipoid görünümler izlenmekte olup trakeanın posteriorunun korunduğu dikkat çekmektedir.



Resim 3. Bronş epitelinin yanı sıra dejenerasyon gösteren kıkırdak dokusu H.E X100

trakea ön ve yan duvarlarında düzensiz kalsifikasyonlar içeren nodüller ve hava yolu kenarında düzensizlik göze çarpar. Trakea arka duvarında nodüller görülmez. Sanal bronkoskopi, bilgisayar donanımlarındaki gelişmeler sayesinde trakeobronşiyal sistem içindeki yapıların ve luminal patolojilerin BT aracılığı ile endoskopi benzeri görünümünün oluşturulduğu bir tekniktir. Her ne kadar ince mukozal ayrıntı değerlendirilemese ve biyopsi alınmasa da, FOB'la geçilemeyen ağır obstrüksiyonların gerisinde kalan lümenin değerlendirilebilmesi ve olası duvar dışı uzanımların görün-



tülenebilmesi açısından üstünlük sağlar.^{7,8} Olgumuza yapılan sanal bronkoskopide de benzer olarak trakea ön ve yan duvarlarında nodüler lezyonlar saptanırken, posterior duvarda lezyonların olmadığı izlenmiştir.

TO'lu olguların çoğunda solunum fonksiyon testleri genellikle normaldir. Hastaların takip sürecinde değerli bir test olabilir.⁷ Olgumuzda değerlerin restriktif çıkması radyolojik görüntülerdeki sekel lezyonların varlığı ile açıklanabilir.

Fiberoptik bronkoskopi tüm endobronşiyal patolojilerde olduğu gibi TO'yu tanımlamak için de en iyi yöntemdir. Bronkoskopik görünümü tipik olup, sıklıkla trakea 2/3 alt ucunda ve ana bronşlarda yerleşimli, sert, beyaz renkli boncuk dizisi, kaya bahçesi, sarkıt mağarası şeklinde tanımlanan çok sayıda polipoid oluşumlar ile karakterizedir. Nodüller sert olduğundan biyopsi almak zor olmakla birlikte, histopatolojik olarak hücreden fakir, submukozal anormal mineralizasyon gösteren kartilaj ve/veya kemik birikimi izlenir.^{4,8} Olgumuzun TO tanısı da destekleyici bronkoskopik görünüm eşliğinde alınan biyopsi ile doğrulanmıştır. Lezyonların sol ana ve üst lob bronşu girişinde yoğun olması radyolojik olarak endobronşiyal kitle şeklinde yorumlanmasına neden olmuştur.

Hastalığın ayırıcı tanısında amiloidoz, tüberküloz, sarkoidoz, trakeobronşiyal kalsinozis, Wegener granülomatosisi düşünülmelidir. Ayrıca trakeal veya bronşiyal tümörlerin de akılda bulundurulması gerekir. Bronkoskopi gerek ayırıcı tanıya giren hastalıkların gerekse TO'ya eşlik ettiği bilinen tiroid tümörü, lenfoma, timoma, epidermoid kist

gibi durumların histopatolojik olarak dışlanması/tanı almasını sağlamakta önemli bir inceleme yöntemidir.^{3,4,8} Özellikle risk faktörleri bulunan vakalarda yapılacak bu basit işlem sayesinde hastalar gereksiz cerrahiden ve kemoterapiden kurtulacak, maddi ve manevi kayıplar önlenmiş olacaktır.

TO'da hastanın tedavisi nadiren gerekir. Prognozu genellikle iyidir ve yavaş ilerleyici bir durumdur. Literatürde trakeal stenozun altı hafta içinde 3 mm'den 8 mm'ye hızlı progrese olduğu bir vaka mevcuttur.⁵ Nodül oluşumunu geriletici spesifik bir tedavi yoktur. Tedavi, nüks eden enfeksiyonların antibiyotikle tedavisini ve obstrüksiyona yönelik girişimleri (kriyoterapi, lazer veya radyoterapi, stent uygulaması, bronkoskopik forseps ile nodül küçültülmesi) içermektedir. Cerrahi rezeksiyon nadir de olsa gerekebilmektedir.^{3,4,8} Olgumuz da beş aydır yakınmasız takip altındadır.

Sonuç olarak, malignite için risk faktörleri bulunan, klinik ve radyolojik olarak endobronşiyal kitle varlığından şüphelenilen durumlarda bazen altta yatan açığa çıkmamış nadir bir benign hastalık söz konusu olabilir. Her ne kadar gelişmiş radyolojik tetkiklerle hastalıkların bir kısmı invazif

işlem gerektirmeden tanınabilse de, bronkoskopi bu alandaki tanınma değerini asla kaybetmeyecek gibi görünmektedir.

KAYNAKLAR

1. Jabbarjarani HR, Radpey B, Kharabian S, Masjedi MR. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: Presentation of ten cases review of the literature. *Lung* 2008;186:293-297.
2. Prakash UB. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Semin Respir Crit Care Med* 2002;23:167-175.
3. Karlikaya C, Yuksel M, Kiliçli S, Candan L. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Respirology* 2000;5:377-380.
4. Leske V, Lazor R, Coetmeur D, et al. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: a study of 41 patients. *Medicine (Baltimore)* 2001; 80:378-390.
5. Hussain K, Gilbert S. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Clinical Medicine&Research* 2003;3:239-242.
6. Kart L, Kiraz K, Büyükoğlan H, et al. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: two cases and review of the literature. *Tüberküloz ve Toraks Dergisi* 2004;52:268-271.
7. Çelik G, Kumbasar ÖÖ, Ülger F, ve ark. Trakeobronkopati osteokondroplastika. *Toraks Dergisi* 2002;3:200-203.
8. Restrepo S, Pandit M, Villamil MA, et al. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica: helical CT findings in 4 cases. *J Thorac Imaging* 2004;19:112-116.