

KIL EKSPEKTORASYONUNA NEDEN OLAN ANREZEKTABL, MEDİYASTİNAL VE İNTRAPULMONER MATÜR KİSTİK TERATOM OLGUSU

Atike DEMİR*, Ahmet ÜÇVET**, Sena YAPICIOĞLU*, Melih BÜYÜKŞİRİN*, Metin ÖZKAN*, Nur YÜCEL***
Ümit BAYOL****, Gökhan YUNCU**, Serir AKTOĞU*

* İzmir Göğüs Hastalıkları ve Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göğüs Hastalıkları Kliniği, İZMİR

** İzmir Göğüs Hastalıkları ve Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göğüs Cerrahisi Kliniği, İZMİR

*** İzmir Göğüs Hastalıkları ve Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Kliniği, İZMİR

**** SSK Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Kliniği, İZMİR

ÖZET

45 yaşında erkek hasta dispne ve sol yan ağrısı nedeniyle pek çok kez doktora başvurmuş. 3 yıl önce hastanemizde üst mediastende kitle saptanmış. Bronkoskopi normal, bronş aspirasyon sitolojisi benign ve asidorezistan basil negatif bulunmuş. Torakotomiye kabul etmeyerek taburcu olmuş. 3 ay sonra başka bir hastanede yapılan torakotomide ana vasküler yapılara ve toraks duvarına invaze kitle saptanmış ve anrezektabl olarak değerlendirilmiş. Biyopside akciğer dokusunda tümör izlenmemiş; bir alanda granülasyon dokusu saptanması nedeniyle tüberküloz tanısı konarak 6 ay tüberküloz tedavisi verilmiş. Yakınmalarının devam etmesi ve 15 gün önce hemoptizi başlaması üzerine kliniğimize başvurdu. Fizik bakı ve laboratuvar incelemeleri normal bulundu. Akciğer grafisinde nonhomojen sol hiler dansite, toraks bilgisayarlı tomografisinde sol üst lob bronşunun başlangıç kesimini saran kitle izlendi. Bronkoskopide sol üst lob içinde serbest, beyaz, iplik görünümünde uzantılar ve apikoposterior segmenti tama yakın tkayan vejetan kitle görüldü. Biyopside hiperkeratöz gösteren, skuamöz epitel ile çevrili polipoid yapı ve epitelde keratohyalin granülleri saptandı. İplik görünümündeki materyal saç kılı olarak değerlendirildi. Teratom düşünülerek torakotomi yapıldı. Ön mediasten ve sol üst lobdaki kitlenin alt lob, perikard, pulmoner arter ve toraks duvarını invaze ettiği gözlemlendi. Kitle içinde nekrotik, kötü kokulu materyal ve bol kıl mevcuttu. Kitle rezeke edilemedi ve biyopsi "matür kistik teratom" olarak değerlendirildi.

Anahtar kelimeler: İntrapulmoner, mediasten, teratom

SUMMARY

A Case of Unresectable Mediastinal and Intrapulmonary Mature Cystic Teratoma Causing Expectoration of Hair

A 45-years-old male patient had ongoing complaints of dyspnea and left-sided chest pain. A density in his left hilar region on chest X-ray and a mass on upper mediastinum on thorax computed tomography (CT) were detected in our hospital three years ago. Bronchoscopic evaluation was normal. Cytologic examination of the bronchial aspiration material was in benign character and negative for acid-fast bacilli (AFB). He was offered thoracotomy, but he did not accept it and was discharged. After 3 months he underwent thoracotomy in another hospital and a mass invading main vascular structures and also the chest wall was discovered.

Yazışma adresi: Atike DEMİR, İzmir Göğüs Hastalıkları ve Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Yenişehir/İZMİR
e-mail: atikeirfan@ttnet.net.tr

Alındığı tarih: 18.12.2003, kabul tarihi: 18.06.2004

The mass was evaluated as unresectable. On biopsy, no tumor was seen in the lung tissue and as granulation tissue was seen in one area, the case was diagnosed as tuberculosis and received treatment for 6 months. He was admitted to our clinic because of ongoing complaints and hemoptysis which started 15 days ago. Physical examination and laboratory investigations were in normal limits. His chest X-ray revealed a nonhomogeneous density in the left hilar region. Thorax CT showed a mass in the left upper lobe and mediastinum. Bronchoscopic evaluation revealed fiber-like, white material in the left upper lobe and a mass subtotally occluding the apicoposterior segment. Biopsy showed polypoid structure with hyperkeratosis covered by squamous epithelium and keratohyaline granules in the epithelium. The fiber-like material was evaluated as hair. The patient underwent thoracotomy with a presumptive diagnosis of teratoma. The mass in the anterior mediastinum and left upper lobe was invading the lower lobe, pericardium, pulmonary artery and the chest wall. The mass contained necrotic, putrid material and a big amount of hair. The tumor could not be completely resected. The pathologic diagnosis was mature cystic teratoma.

Key words: Intrapulmonary, mediastinal, teratoma

GİRİŞ

Teratomlar, germ hücreli tümörlerden olup %60-80'i benigndir^(1,2). İntratorasik teratomların çoğunluğu mediyastende gelişir ve tüm mediasten tümörlerinin %3-12'sini oluştururlar^(3,4). İntrapulmoner teratomlar ise çok nadirdir; literatürde 30 dolayında olgu bildirilmiştir^(2,5-9). Hem mediyasten hem akciğerde yerleşen, teratom için spesifik kıl ekspektorasyonu (trichoptysis) semptomu olan ve histopatolojik olarak matür (benign) olmasına rağmen kitlenin büyüklüğü ve çevre dokulara invazyonu nedeniyle rezeke edilemeyen nadir bir teratom olgusunu sunuyoruz.

OLGU

45 yaşında, erkek olgu; 8 yıl önce başlayan efor dispnesi ve sol yan ağrısı yakınmalarıyla pek çok kez doktora başvurmuş. 3 yıl önce hastanemizde çekilen akciğer grafisinde, sol hiler dansite, toraks bilgisayarlı tomografisinde (BT), üst mediyastende kitle saptanmıştı. Bronkoskopide endobronşiyal lezyon izlenmemişti. Bronş aspirasyonunun sitolojisi benign ve asidorezistan basil (ARB) incelemesi (-) bulunmuştu. Torakotomi önerisini kabul etmeyerek kendi isteği ile taburcu olmuştu. 3 ay sonra başka bir hastanede yapılan torakotomide; kitlenin aorta, pulmoner arter, subklavyen arter ve toraks duvarına

invaze olması nedeniyle anrezektabl olarak değerlendirilmiş; biyopsi alınarak operasyon sonlandırılmış. Akciğerden alınan biyopsi materyalinde tümör saptanmamış; yángısal hücre infiltrasyonu ve bir alanda yabancı cisim dev hücre gruplarını da içeren "granulasyon dokusu" izlendiği rapor edilmiş. Bu bulgularla tüberküloz tanısı konarak 6 ay anti-tüberküloz tedavi verilmiş. Yakınmalarının devam etmesi ve onbeş gün önce balgamla karışık hemoptizi başlaması üzerine kliniğimize başvurdu.

20 paket/yıl sigara içmiş olan olgunun torakotomi ve tüberküloz tedavisi dışında öz ve soygeçmişinde özellik yoktu. Fizik bakıda TA: 100/70mmHg, Nb: 88/dak Ateş: 36.5°C, SS: 18/dak. Sol göğüste insizyon skarı mevcuttu. Solunum sistemi ve diğer sistem bakılarında patoloji saptanmadı.

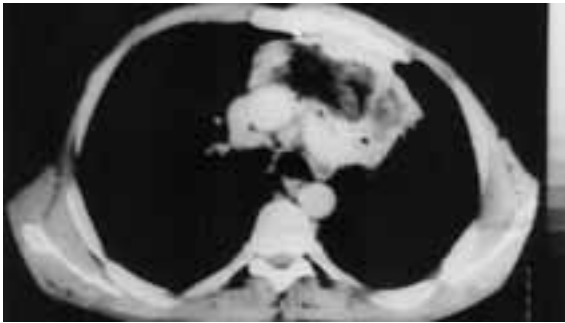
Laboratuvar incelemesinde Sedimentasyon: 30 mm/saat Hb:13.9g/dL Hct: %43.2 PLT:326, 000/mm³ AKŞ: 87 mg/dL BUN: 19 mg/dL Diğer rutin biyokim-yasal tetkikleri normal bulundu. 3 kez balgamda ARB (-) saptandı.

PA akciğer grafisinde sol hiler bölgede, mediyastene bitişik, 4x10 cm boyutlarında, düzensiz kenarlı, nonhomojen dansite artışı (Resim I), Toraks BT'de sol hilus üst kesiminde, üst lob bronşunun başlangıç kesimini saran ve içinde nekroz alanları ve hava odacıkları olan, atelettazi oluşturan kitle izlendi (Resim II).

Resim I: Olgunun posteroanterior akciğer grafisi

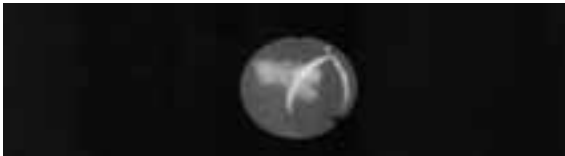


Resim II: Olgunun toraks bilgisayarlı tomografisi



Bronkoscopide sol üst lob apikoposterior segmenti tama yakın tıkayan, beyaz renkli vejetan kitle (Resim III) ve üst lob lumeni içinde serbest hareket eden, beyaz, iplik görünümünde uzantılar görüldü. Biyopside hiperkeratöz gösteren, skuamöz epitel ile çevrili, çok az stroma bulunan polipoid yapı ve epitelde keratohyalin granülleri saptandı. İplik görünümündeki materyal “saç kılı” olarak değerlendirildi (Resim IV).

Resim III: Lezyonun bronkoskopik görüntüsü



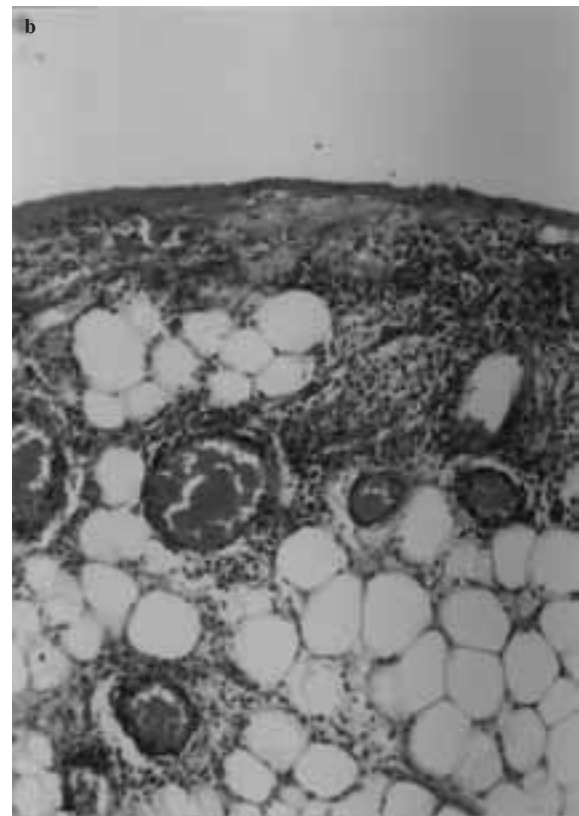
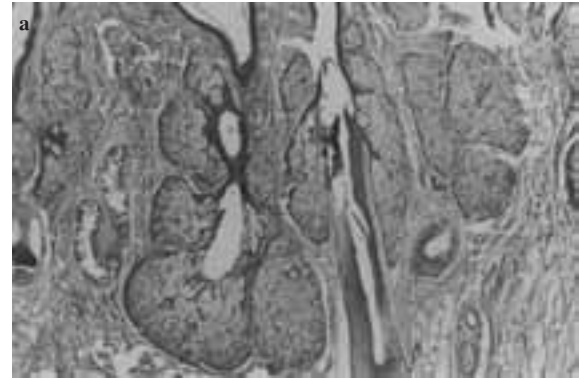
Resim IV: Saç kılının mikroskopik görünümü

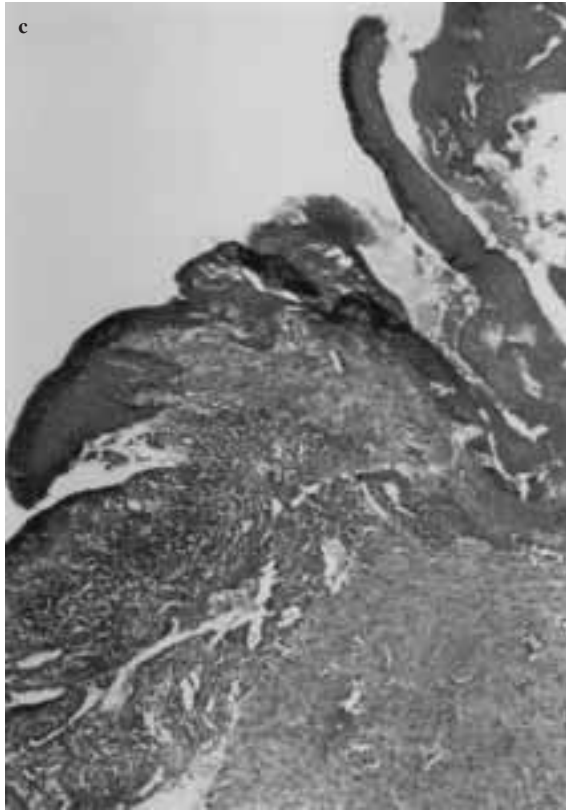


Bronş aspirasyonu ve fırça materyalinde ARB (-), sitoloji benign olarak değerlendirildi.

Hasta yerinden sorgulandığında, 2 yıldır içinde beyaz kıl parçaları bulunan balgam çıkardığını belirtti. Olguya “teratom” düşünülerek torakotomi uygulandı. Ön mediasten ve sol üst lobda yerleşen kitlenin, sol alt lob, perikard ve intraperikardial olarak pulmoner arteri ve toraks duvarını invaze ettiği gözlemlendi. Kitle içinde nekrotik, kötü kokulu materyal ve bol miktarda kıl mevcuttu. Kitle rezeke edilemedi ve biyopsi materyali “matür kistik teratom” olarak değerlendirildi (Resim Va, b, c).

Resim Va, b, c: Operasyon materyalinin histopatolojik görünümü





TARTIŞMA

Tüm germ hücreli tümörlerin %3-7'si ekstrapulmonal yerleşimli olup %1-2'si mediasten yerleşimlidir⁽¹⁾. Bu tümörlerin çoğunluğunu (%60-70) oluşturan benign teratomların da %95'i ön mediastende yerleşir^(1,4). Çok nadir görülen intrapulmoner teratomlar ise olgumuzda olduğu gibi en sık sol üst lobda görülmektedir^(5,6,8,10). Akciğerde, ya mediastendeki teratomun perforasyonu⁽⁴⁾ ya da erken embriyo döneminde izole gelişmesi⁽¹¹⁾ sonucu ortaya çıkabilir. Olgumuzda 3 yıl önce bronkoskopide endobronşiyal lezyon izlenmemesi ve 2 yıldır kıl ekspektorasyonu tanımlaması nedeniyle teratomun, mediastenden akciğere doğru ilerlemiş olabileceği düşünüldü. Genç erişkinlerde daha sık olmakla birlikte teratomlar her yaşta (7 ay- 65 yaş) ve her iki cinsten eşit oranda görülebilmektedir^(1,4,6). Predispozan faktörler ve eşlik eden patolojiler tam bilinmemektedir⁽⁴⁾. Olguların 1/3'ü asemptomatiktir^(1,4). Genellikle kistin enfekte olması, perikard veya plevra boşluğu ile bronşa açılması sonucu semptomlar gelişir⁽¹⁾. Dispne, öksürük, ağrı,

hemoptizi, ateş, kilo kaybı gibi nonspesifik semptomlar görülebilir^(4,7,8) veya tümör bronşektazi, abse, pnömoni, ampiyem şeklinde kendini gösterebilir^(7,12). Tümör rezeksiyonu ile düzelen hipoglisemi atakları⁽¹⁾, geç dönemde Vena Cava Superior Sendromu gelişebilir⁽⁴⁾. Sebun ve olgumuzda bulunan kıl (trichoptysis) ekspektorasyonu oldukça nadir görülen spesifik semptomlardır^(4,9,13). Yao⁽¹⁴⁾, 20 teratom olgusunda en sık öksürük (%95), en az (%20) kıl ekspektorasyonu bildirmiştir.

Teratomlarda, tipik olarak 3 germ tabakasına ait (ektoderm, mezoderm ve endoderm) matür dokular bulunabilmekle birlikte olgumuzda olduğu gibi ektodermal yapılar genellikle ön plandadır^(1,4).

Benign teratomda laboratuvar bulguları genellikle normaldir⁽⁴⁾. Radyolojik olarak en sık mediastende iyi sınırlı kitle akciğerde periferik havalı alanlar ve kalsifikasyonlar içerebilen lobule kitleler şeklinde görülür^(4,6).

Tedavi, cerrahi rezeksiyondur. Ancak tümörün büyüklüğü ve diğer yapıların (perikard, akciğer, büyük damarlar, timus, göğüs duvarı, hiler yapılar, özofagus, diyafragma) tutulması nedeniyle tam rezeksiyon zor olabilmektedir^(4,15). Vital mediasten yapılarının tutuluşuna bağlı subtotal rezeksiyon yapılan hastalarda bile yaşam süresi uzun olabilmektedir⁽⁴⁾. Olgumuzda tümörün büyüklüğü ve geniş bir alanda önemli yapılara invazyon göstermesi nedeniyle rezeksiyon yapılamamıştır. Benign teratomlar, radyoterapi ve kemoterapiye rezistan olduğu için tedavide yeri yoktur^(1,4).

Tanı sürecinin uzun olması, hastanın yakınmalarının tam olarak bilinmemesi, ilk torakotomide biyopsinin kitleye komşu akciğer dokusundan alınması ve patoloji raporunun (granulasyon dokusunun granulatöz lezyon olarak) yanlış yorumlanması, bunun sonucunda uzun süreli tedavi verilmesi gibi faktörler nedeniyle ve ayrıca histopatolojik olarak benign olmasına rağmen klinik davranışı (yaygın invazyon) nedeniyle rezeksiyon edilemeyen teratom olgusu ilginç bulunarak sunuldu.

KAYNAKLAR

1. Roberts JR, Kaiser LR. Acquired lesions of the mediastinum:

- benign and malignant. In: Fishman AP, ed. Fishman's Pulmonary Diseases and Disorders (vol 2). 3rd ed. Philadelphia: McGraw-Hill Companies; 1998:1509-1537.
2. Beşoğul Y, Özcan V, Kabukcuoğlu S ve ark. Ektopik timus dokusundan gelişen pedinküllü intrapulmoner teratom. *Toraks Dergisi* 2002;3:356-358.
3. Gündoğdu C, Samurkaşoğlu AB, Topçu S ve ark. Trichorea semptomu veren bir mediastinal teratom olgusu. *Solunum Hastalıkları* 1992;3:217-221.
4. Hainsworth JD, Greco FA. Primary germ cell tumors of the thorax. In: Holland JF, Frei III E, Bast RC Jr, ve ark, eds. *Cancer Medicine* (vol 2). 3rd ed. Philadelphia, London: Lea & Febiger; 1993:1362-1371.
5. Suzuki Y, Saiga T, Ozeki Y ve ark. Two cases of intrapulmonary teratoma. *Nippon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* 1993;41:498-502.
6. Morgan DE, Sanders C, McElvein RB ve ark. Intrapulmonary teratoma: a case report and review of the literature. *J Thorac Imaging* 1992;7:70-77.
7. Steier KJ. Benign cystic teratoma of the lung. *Postgrad Med* 1988;83:85-86.
8. Iwasaki T, Iuchi K, Matsumura A ve ark. Intrapulmonary mature teratoma. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg* 2000;48:468-472.
9. Ustun MO, Demircan A, Paksoy N ve ark. A case of intrapulmonary teratoma presenting with hair expectoration. *Thorac Cardiovasc Surg* 1996;44:271-273.
10. Holt S, Deverall PB, Boddy JE. A teratoma of the lung containing thymic tissue. *J Pathol* 1978;126:85-88.
11. Ichikawa S, Ishimoto N, Sawaki K, Asai Y ve ark. A case of teratoma in both the mediastinum and the intrapulmonary system. *Kyobu Geka* 2000;53:163-166.
12. Tandon S, Kant S, Singh AK ve ark. Primary intrapulmonary teratoma presenting as pyothorax. *Indian J Chest Dis Allied Sci* 1999;41:51-55.
13. Tangthangtham A, Wongsangiem M, Koanantakool T ve ark. Intrapulmonary teratoma: a report of three cases. *J Med Assoc Thai* 1998;81:1028-1033.
14. Yao SZ. Teratoma of the lung: report of 3 cases. *Zhonghua Wai Ke Za Zhi* 1990;28:171-173.
15. Dhar S, Guleria R, Jindal SK. Posterior mediastinal teratoma. *Indian J Chest Dis Allied Sci* 1992;34:153-156.