

Astımı Taklit Eden Tracheopatia Osteoplastika Olgusu

A Tracheopathia Osteoplastica Case Simulating Asthma

Aydın Yılmaz¹, Pınar Ergün¹, Yurdanur Erdoğan¹, Ülkü Yılmaz Turay¹, Çiğdem Biber¹, Bülent Çiftçi¹, Ezgi Hacıkamiloğlu¹, Yetkin Ağaçkiran²

¹ Atatürk Göğüs Hastalıkları ve Göğüs Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göğüs Hastalıkları Kliniği, Ankara

² Atatürk Göğüs Hastalıkları ve Göğüs Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Bölümü, Ankara

ÖZET

Tracheopatia osteoplastika (TO), trakea ve ana bronş mukozasında normal epitel kaplı, değişik sayıda irregüler kemiksi ve kıkırdak benzeri nodüller ile karakterize, nadir görülen bir hastalıktır. Genellikle asemptomatik seyrederek. Astım benzeri yakınmaları olan 42 yaşındaki kadın hasta, toraks bilgisayarlı tomografide (BT) izlenen trakeal kalsifikasyon ve kontur düzensizliği nedeniyle bronkoskopik incelemeye alındı. Hava yollarında izlenen lezyonlardan alınan biyopsi örneklerinin histopatolojik incelemesi ile TO tanısı alan olgumuz, nadir görülmesi ve astımı taklit etmesi nedeniyle, literatür incelenerek sunulmaktadır.

Anahtar sözcükler: tracheopatia osteoplastika, astım

ABSTRACT

Tracheopathia osteoplastica (TO) is characterized by variable numbers of irregular, bony and cartilaginous excrescences of the tracheal and main bronchus mucosa, covered by normal epithelium. The disease is usually asymptomatic. A 42-year old woman suffering from asthma like symptoms underwent bronchoscopic evaluation, as her thorax CT revealed calcification and irregular contours in the tracheal wall. Histopathological examination of the biopsy specimens revealed TO. This rarely seen case which mimics asthma is presented with the review of the literature.

Keywords: tracheopathia osteoplastica, asthma

GİRİŞ

Tracheopatia osteoplastika (TO, Trakeobronkopatia osteokondroplastika veya tracheopatia kondroosteoplastika olarak da adlandırılmıştır) trakea ile ana bronşların submukozasında kıkırdak ve kemik nodülleri ile karakterize, nadir görülen, benign bir durumdur^[1]. Nodüller çoğunlukla trakeanın alt 2/3'lük kısmında, anterior ve lateral duvarda bulunur^[2]. Olguların çoğu tesadüfen yapılan otopsilerde bulunmuştur. Çok az olgu ise bronkoskopi işlemi sırasında tanımlanmıştır. TO'luların çoğu, astım veya KOAH olarak yıllardır takip edilen hastalardır^[3]. Hastalığın etiyojisi ve patogenezi bilinmemektedir, ancak altta yatan neden olarak kronik enflamasyon, kimyasal iritasyon, metabolik dengesizlik, amiloidoz, tüberküloz, sfiliz, trakeobronşiyal kıkırdak halkalardan köken alan encondrozlar ve elastik dokunun metaplazisi suçlanmaktadır^[1,2]. Familial olguların da bulunması nedeniyle genetik faktörlerin de etkili olabileceği bildirilmiştir^[4]. Küçükusta ve arkadaşlarının 1991 yılında ülkemizden yayınladıkları ilk TO olgusunu, başka olgular izlemiştir^[5]. Tipik radyolojik görünüm, trakea ve bronş duvarlarının nodüler veya düzensiz kalınlaşmasıdır^[6]. Hava yolu lümenindeki darlığın derecesine bağlı olarak değişik semptomlar görülebilmekle birlikte, genellikle hastalar asemptomatiktir^[7]. Bazı hastalar da yanlışlıkla astım tanısı alabilmektedir. Bizim olgumuz da, nadir gö-

rülen bir olgu olması, astım tanısı ile uzun süreler takip edilmesi ve astım tanısı konan hastalarda akılda tutulması gereken bir hastalık olduğunun vurgulanması amacıyla, yayımlanmaya değer bulunmuştur.

OLGU

Kırk iki yaşında kadın hasta, 10 yıldır eforla artan nefes darlığı, öksürük ve vizing şikâyeti ile kliniğimize başvurdu. Sigara öyküsü yoktu. Son yıllarda hastanın nefes darlığında ve öksürük şikâyetlerinde artma olmuştu. Başvurduğu merkezlerde bronşiyal astım tanısıyla tedavi alan hastanın fizik muayenesinde vizing duyulmaktaydı. Rutin laboratuvar incelemelerinde anormal bulgu yoktu. Solunum fonksiyon testi (SFT) değerleri normal sınırlardaydı. Posteroanterior (PA) akciğer grafisinde trakeanın distal kısmının dar olduğu saptandı (RESİM 1). Toraksın bilgisayarlı tomografik (BT) incelemesinde trakeal kıkırdaklarda kalsifikasyon ve karina düzeyine kadar kontur düzensizliği izlendi (RESİM 2). BT'de izlenen kontur düzensizliğini değerlendirme amacıyla fiberoptik bronkoskopi (FOB) yapıldı. FOB'da epiglot, larinks ve vokal kordlar normal olarak izlendi. Vokal kordlardan hemen sonra başlayan trakeanın anterior ve lateral duvarlarında mukozadan kabarıklık, ondülasyonlar gösteren, genellikle 1 cm'den küçük, sert, beyaz refle veren lezyonlar ana karina dahil devam

Alındığı tarih: 10 Mayıs 2007; **Revizyon sonrası alınma:** 10 Mayıs 2007; **Kabul tarihi:** 1 Aralık 2007

Yazışma adresi (Address for correspondence): Uzm. Dr. Aydın Yılmaz, Atatürk Göğüs Hastalıkları ve Göğüs Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, 7. Servis Sanatoryum Keçiören 06280 Ankara, Tel: 0 (312) 355 21 10/1073; E-posta: aydnyilmaz@yahoo.com

© 2009 Türkiye Solunum Araştırmaları Derneği (TÜSAD)

Solunum 2009;11(2):88-90

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



Resim 1. Trakeanın distal kısmında darlık.

ediyordu. Ana bronşlar düzeyinde lezyonlar kaybolmaktaydı. Alınan forseps biyopsi örneklerinin tanısız olmaması üzerine yapılan rijid bronkoskopi ile alınan biyopsi örneklerinin histopatolojik incelemesinde, trakea yüzey epiteli altında submukozal matür kemik doku alanları izlendi ve trakeopatia osteoplastika tanısı kondu (Resim 3).

Ayırıcı tanıda ele alınan relapsing polikondrit, bronkoskopi ile alınan materyalin patolojik incelemesinde kırıkdağ matrisinde bazofilik boyanmada azalma olmaması ve perikondrial hücre infiltrasyonu, kırıkdağ destrüksiyonu ve fibrozis gibi bulguların saptanmaması nedeniyle ekarte edilmiştir. Ayırıcı tanıda C-ANCA'nın negatif olması, balgam ve bronkoskopik lavajın toplam 5 örnekte ARB yönünden negatif bulunması, patolojik incelemede amiloid için yapılan kontrollü histokim-

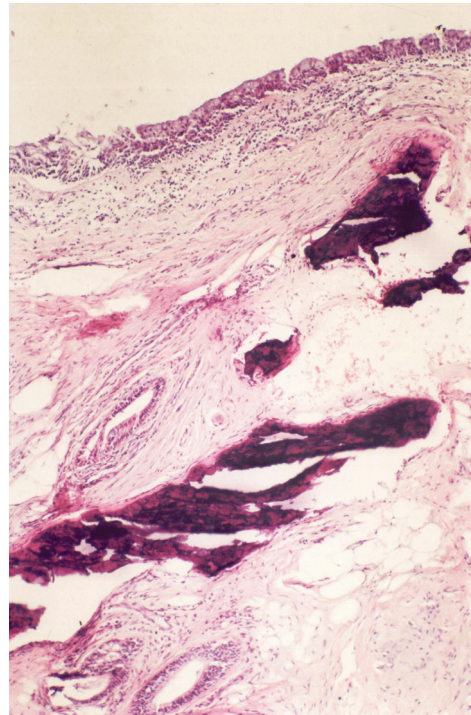
yasal boyamanın negatif olması nedeniyle Wegener granülo-mozu, tüberküloz ve amiloidoz ekarte edildi.

TARTIŞMA

Trakeopatia osteoplastika genellikle erkeklerde ve 50 yaş üzerindeki bireylerde saptanmakla birlikte, genç erişkinlerde, hatta çocuklarda da tespit edilebilmektedir[3,7,8]. Ponder ve Pieterse, TO'nun otopsielerde 1/4000 oranında rastlantısal bulgu olduğunu raporlamışlardır[9]. Bronkoskopi uygulanan olgularda TO insidansının 1/125-1/6000 arasında değiştiği bildirilmektedir[10]. Park ve arkadaşları 3720 FOB işleminde bir, Nienhuis ve arkadaşları 772 FOB uygulamasında bir, Rodriguez ve arkadaşları 8700 FOB'da sekiz olgu bildirmişlerdir[3,7,11]. Ülkemizden Baran ve arkadaşları 20,000 bronkoskopide iki, Sevim ve arkadaşları 19,000 bronkoskopide iki, Tatar ve arkadaşları ise 31,841 işlemde üç TO olgusu saptamışlardır[12,13,14]. Bu kadar farklı oranlarla ilgili olarak literatürlerde belirtilen açıklama, aslında raporlanandan fazla olgunun bulunduğu, ancak bu olguların vizing ve kronik öksürükleri nedeniyle yanlış olarak astım diye adlandırıldıkları yönündedir[3,10]. Sunduğumuz olgu, nefes darlığı, kronik öksürük ve vizing yakınması ile başvurduğu merkezlerce astım olarak adlandırılmış ve uygulanan tedavilere yanıt vermemiştir. TO'lu 41 olgunun sunulduğu bir çalışmada, olguların %54'ünde kronik öksürük saptanmış ve medikal tedaviye cevap vermeyen bu olgulara bronkoskopi yapılarak tanı konmuştur[15]. PA akciğer grafileri trakeal lümeni göstermede sıklıkla yetersizdir ya da sınırlı değer taşımaktadır[3,7]. Tomografide trakeanın kırıkdağ kısmında kalsifikasyon içeren ya da içermeyen çok sayıda submukozal nodüller görülebilir. BT incelemesi, hastalığın daha hafif formlarını saptamada duyarlı değildir. Bronkoskopide trakea ve bronş



Resim 2. Trakeal kırıkdağlarda kalsifikasyon ve karina düzeyine kadar kontur düzensizliği.



Resim 3. Trakea yüzey epiteli altında submukozal matür kemik doku alanları.

sisteminin kıkırdak kısmında tipik kemiksi nodüler görünüm saptanır^[3,10]. Tanı için bronkoskopik görünüm TO'da tek başına yeterlidir. Hava yolundaki nodüllerden biyopsi almak gerekli değildir. Biyopsi uygulandığında histolojik incelemede hastaların %60'ında heterotopik kemik formasyonu gösterilmiştir^[10]. Trakeobronşiyal amiloidoz, hamartom, kondrosarkom, papillomatöz, kalsifiye tüberküloz lezyonları, kronik obstrüktif akciğer hastalığı ve astım bronşiyale ayırıcı tanıda düşünülmesi gereken hastalıklardır^[2,3,14].

Olgumuzda trakea içindeki lezyonlar vokal kordların hemen altında başlamakta ve ana bronşlar düzeyine kadar uzanmaktaydı. Lezyonların dağılımı ile ilgili farklı olgularda farklı yaygınlık düzeyi bildirilmiştir^[3,5,12,14]. Karlıkaya ve arkadaşları ise olgularında yaptıkları kontrol bronkoskopide, lezyonların yaygınlığında progresyon izleyerek, bu nodüllerin bir odaktan başlayarak zaman içinde buradan yayıldığını düşündüklerini ifade etmişlerdir^[16].

Akım-volüm eğrisini de içeren spirometrik incelemeler, hastalığın tanısında ve takibinde kullanılabilmeyle birlikte, bazı olgularda spirometrik incelemeler tamamen normal sınırlarda bulunabilmektedir. Bizim olgumuzda ise akım-volüm eğrisini içeren spirometrik inceleme normal bulundu^[17].

Sunduğumuz olgunun PA akciğer grafisinde trakea'nın distal kısmının dar olduğu, tomografik incelemesinde ise trakeal kıkırdaklarda kalsifikasyon ve karina düzeyine kadar kontur düzensizliği izlendi. Olgunun bronkoskopik incelemesinde de TO için tipik lezyonlar saptandı. Bu lezyonlardan rijid bronkoskopi ile aldığımız örneklerin histopatolojik incelemesi ile TO tanısı konuldu.

Trakeopatia osteoplastikanın kesin tedavisi yoktur, prognozu genellikle iyidir. Lezyonlar malign potansiyel taşımaz. TO tedavisi semptomaya yöneliktir. Enfeksiyon ataklarında antibiyotik tedavisi ve/veya ciddi hava yolu obstrüksiyonu olan olgularda kriyoterapi, Nd-YAG lazer veya eksternal radyoterapi, önerilen tedavi yaklaşımlarıdır^[9,14].

FOB ve BT incelemelerinin kullanımı arttıkça TO tanısı konan hastaların sayısında artış olacağı tahmin edilebilir. Klinisyenler bronşiyal astımı düşündüren semptomlarla karşılaş-

tıklarında, özellikle astım ilaçlarına beklenen yanıtı alamadıkları hastalarda, ayırıcı tanı listesine TO'yu da almalıdırlar.

KAYNAKLAR

1. Onitsuka H, Hirose N, Watanabe K, et al. Computed tomography of tracheopathia osteoplastica. *AJR* 1983;**140**:268-70.
2. Ho CM, Ooi GC, Lam B, et al. Recurrent haemoptysis secondary to tracheopathia osteoplastica. *Chinese Medical Journal* 1999; **112**(3):283-85.
3. Park SS, Shin DH, Lee DH, et al. Tracheopathia osteoplastica simulating asthmatic symptoms.1995;**62**:43-45.
4. Prakash UBS, McCullough AE, Edieli ES, Nienhuis DM. Tracheopathia osteoplastica: Familial occurrence. *Mayo Clin Proc* 1989;**64**:465-68.
5. Küçükusta AR, Erk M, Adataş H, Çelikoğlu Sİ. Trakeobronkopatia osteokondroplastika. *Cerrahpaşa Tıp Fak. Der.* 1991;**22**: 473-78.
6. Dennie CJ, Coblentz CL. The trachea: Pathologic conditions and trauma. *Can Assoc Radiol J* 1993;**44**:157-67.
7. Nienhuis DM, Prakash UBS, Edieli ES. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1990;**99**:689-94.
8. Şimşek PO, Özçelik U, Demirkazık F, et al. Tracheobronchopathia osteochondroplastica in a 9 years old girl. *Pediatr Pulmonol* 2006;**41**:95-7.
9. Pounder DS, Pieterse AS. Tracheopathia osteoplastica: A study of the minimal lesion. *J Pathol* 1982;**138**:235-9.
10. Prakash UBS. Uncommon causes of cough. ACCP evidence-based clinical practice guidelines. *Chest* 2006;**129**:206-19.
11. Rodriguez EP, Nunez N, Alvarado C, et al. Diagnosis of Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Chest* 1990;**97**:763.
12. Baran A, Güngör S, Ünver E, Yılmaz A. Trakeobronkopatia osteokondroplastika. Bir olgu nedeniyle. *Tüberküloz ve Toraks Dergisi* 2004;**52**:183-5.
13. Sevim T, Ataç G, Horzum G, et al. Tracheobronchopathia osteochondroplastica : A case report. *Turkish Respiratory Journal* 2002;**3**:72-5.
14. Tatar D, Karakurum Ç, Çırak K ve ark. Trakeobronkopatia osteokondroplastika (İki Olgu). *Solunum Hastalıkları* 2006;**17**:186-90.
15. Leske V, Lazor R, Coetmeur D, et al. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: A study of 41 patients. *Medicine (Baltimore)* 2001;**80**:378-90.
16. Karlıkaya C, Yüksel M, Kılıçlı Ş, Candan L. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Respirology* 2000; **5**:377-80.
17. Tansel E, Keyf İA, Erdoğan Y ve ark. Trakeobronkopatia osteokondroplastika (Bir olgu nedeniyle). *Solunum Hastalıkları* 1999;**10**:87-90.