

Kemik Tutulumlu Kist Hidatik Olgusu

Kamuran Sayılır¹, Selim Sırrı Eren¹, Ayşe Erbay¹, Sualp Turan², Hürrem Bodur¹

Özet: Kist hidatik sıklıkla karaciğer ve akciğer lezyonuyla karşımıza çıkar. Dalak, beyin, kalp, kemik gibi organ ve doku tutulumlarıyla da zaman zaman karşılaşmaktadır. Humerusta tümoral oluşuma bağlı patolojik kırık ön tanısı ile opere edilen ve histopatolojik incelemeyle kist hidatik tanısı konulan bir vaka sunulmuş ve konuyla ilgili literatür gözden geçirilmiştir.

Anahtar Sözcükler: Kist hidatik, kemik tutulumu.

Summary: Hydatid cyst mostly appears with liver and lung lesions. Occasionally, spleen, brain, heart and bone involvement may occur. In our case a patient with a pathologic fracture in the humerus due to a tumoral mass was operated, diagnosis was made histopathologically as hydatid cyst. Reviews of literature relevant to this subject were presented.

Key Words: Echinococcosis, bone involvement.

Giriş

Tüm dünyada yaygın olarak görülen kist hidatik gelişmekte olan ve hayvancılıkla uğraşan ülkelerde halen önemli bir sağlık sorunudur (1). *Echinococcus granulosus* köpek, kurt, tilki gibi etobur hayvanların incebarsağında yaşar. Bu hayvanların dışkılarıyla atılan yumurtalar koyun, sığır ve insan gibi arakonak durumunda olan canlılara fekal-oral yolla bulaşır. Arakonakta parazit, viseral organlarda giderek büyüyen kistik lezyonlar yapar. Bu kist iki şekilde görülür. Birincisi *E. granulosus* ve *E. vogeli* tarafından oluşan hidatid ya da ünüloküler tip, diğeri *E. multilocularis* tarafından oluşan alveoler tiptir. *E. granulosus* Afrika, Orta-doğu, Güney Avrupa, Latin Amerika ve Güneybatı Amerika'da yaygındır. İnsanlara parazitlerin yumurtaları ile kontamine olmuş yiyeceklerle bulaşır. Kist hidatik başlıca karaciğer (%50-70) ve akciğer (%20-30) olmak üzere tüm organ ve dokulara yerleşebilir (1). Kemik tutulumu %0.5-2 oranında görülmekle birlikte endemik bölgelerde bu oran %4 civarındadır (2-6).

Olgu

21 yaşında erkek hasta, travma olmaksızın sol kol kırığı nedeniyle hastanemiz 1. Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği'ne başvurdu. Fizik incelemede, sol kolda kırığa bağlı hareket kısıtlılığı dışında patolojik bulgu tespit edilmedi. Laboratuvar tetkiklerinde, lökosit 8 100/mm³, hemoglobin 14.4 gr/dl, eritrosit sedimentasyon hızı 24 mm/saat, biyokimyasal tetkikleri normaldi.

Çekilen direkt grafide humerus shaftında lineer spiral kırık ve humerus başının normal yapısını bozan litik ve destrüksiyona neden olan kitle görülmesi üzerine patolojik kırık ön tanısı ile yatırıldı (Resim 1).

Sol omuz eklemi ve humerusun 1/3 proksimal bilgisayarlı tomografi (BT) incelemesinde humerus shaftında orta kesimde belirgin deplase fraktür hattı izlendi. Kemikler dahilinde humerus baş ve boyun kesimini içine alan bu bölge-

de ve fraktür hattını dolduran kortekste incelemeye ve yer yer destrüksiyona neden olan, içinde yeni kemik oluşumlarına dair hiperdens görünümünün izlendiği ekspansif özellikte kitle lezyonu görüldü (Resim 2). Teres minör ve infraspinatus kası, humerus komşuluğunda heterojen görünümde olup içinde amorf kalsifikasyonlar izlendi. Triseps kası içinde izlenen hipodens alanlar ve kalsifikasyonların myositis ossificans veya kist hidatikle uyumlu olabileceği düşünüldü. Deltoid kas içinde ve triseps posterolateral komşuluğunda cilt altına doğru uzanan en büyüğü 20 mm çapında olmak üzere hipodens alanlar mevcuttu (Resim 3).

Hasta operasyona alındı. Operasyonda humerus ortasında oblik spiral kırık, kırık hattında medulla ve periostun destrükte olduğu, medullada kirli beyaz kitle yapısındaki dokular ve periost parçaları görüldü ve histopatolojik inceleme için örnek alındı. Kemik doku ile kas ve cilt dokusu arasında kirli sarı renkli krem renkli akıntudan spesifik ve nonspesifik kültür örnekleri alındı. Kültürlerde üreme olmadı, histopatolojik incelemenin kist hidatikle uyumlu saptanması üzerine diğer organ ve doku tutulumları açısından incelendi. Abdominal ultrasonografi normaldi. Kranial, toraks ve abdominal BT incelemelerinde kist hidatikle uyumlu başka lezyon tespit edilmedi. *Echinococcus* için indirekt hemagglütinasyon (İHA) testi 1/128 titrede pozitif, *Echinococcus*-spesifik IgE testi negatif bulundu. Hastaya albendazol 800 mg/gün başlandı ve altı kürlük bir tedavi planlandıysa da hasta daha sonraki takiplerine gelmedi. Hasta evcil hayvan beslemiyordu ve kist hidatik açısından mesleki bir risk taşııyordu.

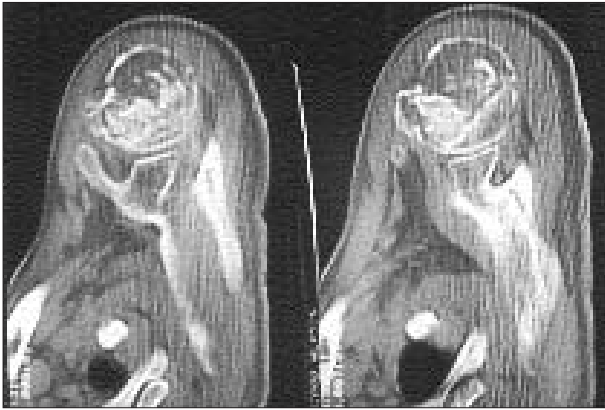
İrdeleme

E. granulosus tarafından meydana getirilen kist hidatik hastalığı yaygın bir zoonozdur (7). Oral yolla alınan larva serbest kaldıktan sonra intestinal epitel yoluyla penetre olur; kan yoluyla hedef organlara taşınır ve parazit bu bölgelerde hidatik kist oluşturur. Bu kistler daha çok karaciğer ve akciğerde meydana gelir; böbrek, dalak ve kemik tutulumu daha az görülür (8). Kemik tutulumu %0.5-4 arasındadır. En sık vertebra (%30-50) ve pelvis kemiklerinde (%15) görülmektedir. Bunları femur, tibia, humerus gibi uzun kemik tutulumları izler (1-5,9,10). Kistin kemikteki gelişimi yavaştır.

- (1) Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, 2. Enfeksiyon Hastalıkları ve Klinik Mikrobiyoloji Servisi, Sıhhiye-Ankara
(2) Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, 1. Ortopedi ve Travmatoloji Servisi, Sıhhiye-Ankara



Resim 1. Humerusun direkt grafideki görünümü.



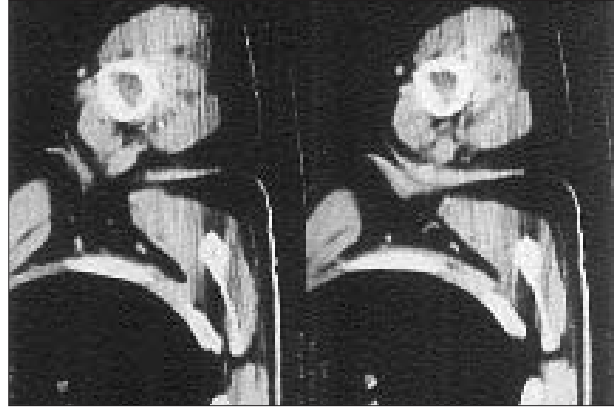
Resim 2. Sol omuz eklemi ve humerusun bilgisayarlı tomografisinde görülen kemik tutulumu.

İnfeksiyon genellikle çocukluk çağında alınır; ancak inkübasyon süresi on yıldan uzun olduğundan klinik olarak ortaya çıkması erişkin yaşa kadar gecikebilir (3,9).

Kemik kist hidatiği karaciğer ve akciğer tutulumundan farklı anatomik ve patolojik bulgular gösterir. Kemik tutulumunda fibröz adventisyal tabaka oluşmadığından gerçek bir kistten söz edilemez. Sınırları çok net olmayan, çok veziküllü bir görüntüsü vardır (11). Kemik yerleşimi kemiğin vaskülarizasyonunun artmış olduğu bölgelerde daha çok görülür (6).

Kemikte iki tip kist hidatik görülür; en sık görüleni polikistik formdur ve tüm kemiğe difüz olarak yayılma eğilimindedir. Daha nadiren de soliter kist hidatik görülür. Kemik kist hidatiğinde konjestiyon ya da inflamatuvar reaksiyon izlenmez; lokal eozinofili görülmez ve kist etrafında fibröz doku reaksiyonu olmaz (12).

Kemik kist hidatiğinde hastalığın gelişimi yıllar alır; hastanın genel durumu bozulmaz; hasta uzun süre asemptomatik kalır. Sekonder infeksiyon, ani bir kırık ya da komşu nöromusküler yapılara bası sonrası bulgu verir. Bazen tesadüfi radyolojik incelemeyle fark edilir (12). Kortikal zayıflamadan dolayı patolojik kırık en sık görülen klinik bulgudur (5). Olgumuzda da ilk bulgu patolojik kırıktı. Kuveyt'den Booz (6)'un bildirdiği 16 kemik tutulumlu kist hidatik olgusunun 9'unda (%56) patolojik kırık ilk belirti olarak tespit edilmiştir. Bu olguların hepsinde alt ekstremitede tutulum varken bizim olgumuzda tutulum üst ekstremitede idi. Literatürde bi-



Resim 3. Bilgisayarlı tomografide humerusa komşu kas ve yumuşak doku tutulumu.

zim olgumuza benzer şekilde humerus tutulumlu kist hidatik nadir de olsa bildirilmektedir (9,12,13).

Tanı spesifik radyolojik bulgu olmaması ve patognomonik klinik bulguların bulunmaması nedeniyle güçtür. Anamnezle birlikte klinik bulgular, laboratuvar testleri ve tekrarlanan radyolojik incelemelerle konulabilirse de, kesin tanı için cerrahi eksizyon ve histopatolojik inceleme gereklidir (12). Direkt radyografik inceleme genellikle tipik bulgu vermemektedir. BT ve manyetik rezonans görüntüleme yöntemleri tanıya daha fazla yardımcı olmaktadır (2,3,9, 10). Kistik lezyonları ve yumuşak doku tutulumunu gösterir (9). Kemikteki lezyonlardan ayrı kalsifiye olmamış kistler ve medüller kanal içindeki kız kistleri de gösterebilir (3). Kemik hidatik kistinin direkt radyografik görüntülemesinde kaba trabeküler yapı içinde radyolüsent alanların bal peteği görünümü oluşturduğu izlenir. Bu bulguya kortekste inceleme ve kemikte genişleme eşlik eder. Bazen komşu yumuşak dokuda şişlik ve kalsifikasyon görülür ki, bu kist hidatik tanısını destekleyici bir bulgudur. Booz (6) çalışmasında 16 olgunun 6 (%38)'sında yumuşak dokuda kalsifikasyon bildirmiştir. Bizim olgumuzda da BT ile teres minor, infraspinatus ve triseps kası içinde kalsifikasyonlar tespit edildi (Şekil 3).

E. granulosus ve *E. alveolaris*'e ait kistik lezyonların makroskopik olduğu gibi mikroskopik olarak da birbirinden ayırımı güçtür. *E. granulosus* infeksiyonundaki vezikül konektif doku kapsülüyle kaplı ve tomurcuklanma göstermeyen alveoler ekinokokozdaki vezikülde genişlemiş tomurcuklanma, kapsülün olmaması ve komşu dokuya invazyonu ayırım yaratır. *E. granulosus*'ta kist membranında çok sayıda hidatik sıvıda yüzen skoleks bulunurken *E. alveolaris*'te kistik kavitede az miktarda sıvı ve nadir skoleksler vardır (14).

Hidatik kistin serolojik tanısında ELISA, Western blot, İHA, polimeraz zincir reaksiyonu gibi testlerden yararlanılır. Serolojik yöntemlerin karaciğer tutulumunda duyarlılığı %80-100 ve özgüllüğü %88-96'dır. Bu testlerin akciğer tutulumu için %50-56, diğer organ tutulumları için %25-56 arasında duyarlı olduğu bildirilmektedir (1). Serolojik tanıda kullanılan *E. granulosus*-spesifik IgE düzeylerinin kistlerin lokalizasyonuna bağlı olduğu bildirilmektedir. Karaciğer kist hidatiğinde duyarlılığı %92 iken, kemik tutulumunda %61.5 olarak bulunmuştur (7).

Patolojik kırık nedeniyle opere edilen olgumuzda tanı, alınan biyopsi materyalinin histopatolojik incelenmesiyle

konulmuştur. Yapılan serolojik incelemelerde İHA pozitif bulunurken, *E. granulosus* -spesifik IgE negatif saptanmıştır.

Ayırıcı tanı; yerleşim yerine, lezyonun büyüklüğüne, dokuya invazyonuna göre, tüberküloz osteomyelit, artrit, fibröz displazi, basit kemik kisti ve kemik tümörleri ile yapılmalıdır. Booz (6)'un bildirdiği ve opere edilen dört kemik hidatidozlu olgunun preoperatif tanısı ancak iki vakada mümkün olmuştur.

Kist hidatik hastalığında kemik tutulumu nadir görülmele birlikte, endemik bölgelerde kemikte yer kaplayan tümörler, Pott hastalığı ve patolojik kemik kırıklarında ayırıcı tanıda akıldan tutulması gerekir. Yapılan bir çalışmada klinik olarak Pott hastalığı tanısı konulan hastaların %17'sinin kist hidatik olduğu bulunmuştur. *E. granulosus*'un kemikte lokalize olduğu durumlarda multiloküler lezyon şeklinde de görülebilmektedir (15).

Kemik kist hidatiğinde cerrahi tedavi total eksizyonun güçlüğü nedeniyle tek başına başarılı olmayabilir ve yayılım riskini artırabilir. Albendazol tedavisi ile birlikte cerrahi tedavi daha başarılı görünmektedir. Tek başına cerrahi tedavi uygulanan hastalarda yüksek nüks bildirilmekte, operasyon öncesi bir kür ve operasyon sonrası altı kür olmak üzere albendazol tedavisi önerilmektedir (9,10). Kemik kist hidatiğinde albendazol tedavisinin etkinliği tedavi süresi ile bağlantılıdır. Metastodanın yavaş büyüme hızından dolayı hastalar iki yıldan uzun süre takip edilmelidir. Albendazol ve prazikantelin kombine verilmesinin tek başına albendazol tedavisinden daha başarılı olduğu bildirilmiştir (10). Pintile ve arkadaşları (12)'nin sunduğu humerus tutulumlu kist hidatik olgusunda sadece cerrahi tedaviden sonra defalarca nüksün görüldüğü kemiğin ileri derecede destrüksiyona uğradığı bildirilmiştir (12).

Kaynaklar

1. King CH. Cestodes. In: Mandell G L, Bennett J E, Dolin R. eds. *Principles and Practice of Infectious Diseases*. 5th ed. Philadelphia: Churchill Livingstone, 2000: 2962-63
2. Falagas ME, Siakavellas EC, Sapkas G. Diagnosis: echinococcal cyst of the fifth thoracic vertebra in an otherwise healthy young woman. *Clin Infect Dis* 2000; 30:568
3. Ritabh Kumar, Manpreets Gulati, H. L Nag. MR appearances in a case of femoral echinococcosis. *Skeletal Radiol* 2000; 29 : 235-8
4. Savaş R, Alper H, Çallı C. Spinal cord compression due to costal Echinococcus multilocularis. *Computerized Medical Imaging and Graphics* 1999;23:85-8
5. Paramjeet S, Shankar S, Sharma BS. MR in sacral echinococcosis. *J Comput Assist Tomogr* 2000; 24:176-7
6. Booz MY. The value of plain film findings in hydatid disease of bone. *Clin Radiol* 1993;47:265-8
7. Anders S, Guisantes JA, Josep M. The diagnosis of human hydatidosis by measurement of specific IgE antibody by enzyme immunoassay. *Scand J Infect Dis* 1989; 21:213-8
8. Caasero RD, Costas MG, Menso E. An unusual case of hydatid disease: localization to the gluteus muscle. *Clin Infect Dis* 1996; 23:395-6
9. Parola P, Mathieu D, Panuel M. Diagnosis: hydatid bone disease (cystic echinococcosis). *Clin Infect Dis* 2000; 31:543-4
10. Bonifacino R, Craig PS, Dogliani E. Albendazole treatment and serological follow-up in hydatid disease of bone. *Int Orthop* 1997; 21:127-32
11. Saygı G. *Temel Tıbbi Parazitoloji*. Sivas:Esnaflık Ofset Matbaacılık, 1998:158-65
12. Pintilie DC, Hatmasu D, Panoza GH. Echinococcosis of the humerus. *J Bone Joint Surg [A]* 1966; 48(5):957-61
13. Markonis A, Tavernaraki A, Papaevangelou M. Humeral hydatid cyst complicated with extraosseous involvement: a case of unusual location echinococcosis. *Eur J Radiol* 2001; 37(2):130-3
14. Dorn R, Küsswetter W, Wunsch P. Alveolar echinococcosis of the femur. *Acta Orthop Scand* 1984; 55:371-4
15. Bruschi F, Ioppolo S, Ortana E. Immunochemical and molecular characterization of vertebral hydatid fluid. *Scand J Infect Dis* 1999; 31:322-3