

Trakeobronkopatia Osteokondroplastika (Olgu Sunumu)#

Ayşe ÇIKIM SERTKAYA*, Zeki YILDIRIM**, Tamer BAYSAL***, Özkan KIZKIN**, Münire GÖKIRMAK**, S. Savaş HACIEVLİYAGİL**, H. Canan HASANOĞLU**

* İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi İç Hastalıkları Anabilim Dalı,
** İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı,
*** İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi Radyoloji Anabilim Dalı, MALATYA

Bu çalışma, Toraks Derneği IV. Yıllık Kongresi'nde poster olarak sunulmuştur.

ÖZET

Trakeobronkopatia osteokondroplastika (TO); etyolojisi bilinmeyen, trakea ve ana bronşlarda çok sayıda osteokartilajinoz submukozal nodüller ve trakeal kalsifikasyonlar ile karakterize, nadir görülen bir hastalıktır.

Göğüs ağrısı, nefes darlığı, kuru öksürük ve yüksek ateş yakınmalarıyla kliniğimize başvuran 56 yaşındaki erkek hasta pnömoni tanısıyla yatırıldı. Toraks bilgisayarlı tomografide tiroid düzeyinin altından karınaya kadar uzanan trakeal kalsifikasyonlar saptandı. Bronkoskopide trakea ve ana bronşlarda mukozada yaygın düzensizlik ve nodülerite görüldü. Bu nodüller oluşumlardan alınan bronkoskopik biyopsinin patolojik incelemesinde, mukoza bağ dokusunda osteoid metaplazi saptandı.

Bu bulgularla, TO tanısı konan olgu, nadir görülmesi nedeniyle sunulmuştur.

ANAHTAR KELİMELE: Trakeobronkopatia osteokondroplastika, trakeal kalsifikasyonlar

SUMMARY

TRACHEOBRONCHOPATHIA OSTEOCHONDROPLASTICA (A CASE REPORT)

Tracheobronchopathia osteochondroplastica (TO); is a rare disease of obscure etiology characterized by multiple osteocartilaginous submucosal nodules and tracheal calcifications in trachea and main bronchi.

A 56 year-old male patient who admitted to our clinic with the complaints of chest pain, dyspnea, dry cough and fever was hospitalized due to pneumonia. Thorax computed tomography showed tracheal calcifications from the level of thyroid to carina. Bronchoscopic examination revealed irregularity and multiple nodules on the mucosa of main bronchi and trachea. Histopathological examination of the bronchoscopic biopsy taken from these nodules showed osteoid metaplasia in the mucosal connective tissue.

The patient who was diagnosed as TO by these findings, is reported to be a rare one.

KEY WORDS: Tracheobronchopathia osteochondroplastica, tracheal calcifications

GİRİŞ

Trakeobronkopatia osteokondroplastika (TO); trakea ve ana bronşlarda lümeneye doğru çıkıntı yapan çok sayıda submukozal osteokartilajinoz nodüller

ve trakeal kalsifikasyonlar ile karakterize nadir bir hastalıktır (1). Tipik olarak posterior membranöz trakea salımdır. Etiyolojisi kesin olarak bilinmemekle birlikte, bağ dokuda ossifikasyonla sonuçlanan me-

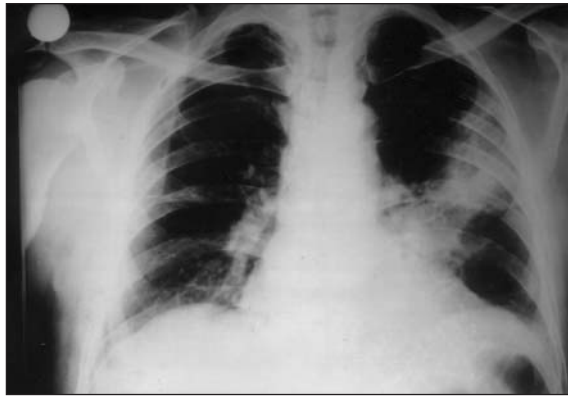
taplazi olduğu ya da hastalığın trakeobronşiyal amiloidoz sonucu olduğu ileri sürülmüştür (2). Olguların çoğu orta yaşlı, asemptomatik erkeklerdir. Ancak kadınlarda üç kat daha fazla görüldüğünü belirten yayınlar da vardır (3). Son yıllarda ulusal dergilerimizde olgu sunumu şeklinde bildiriler yayınlanmıştır (4-6).

OLGU

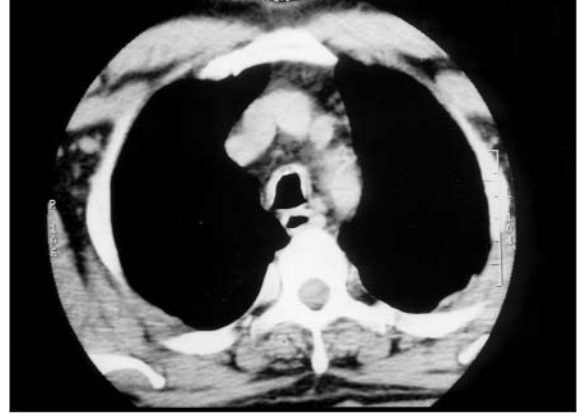
Elli altı yaşındaki erkek hasta, altı gündür devam eden göğüs ağrısı, nefes darlığı, öksürük ve ateş yakınmaları ile kliniğimize başvurdu. Özgeçmişinde 90 paket-yıl sigara öyküsü vardı, soygeçmişinde bir özellik yoktu. Fizik muayesinde, genel durumu iyi, tansiyonu 120/80 mmHg, nabızı 100/dakika, solunum sayısı 26/dakika ve ateşi 39.8°C idi. Oskültasyonda sol akciğer subskapular seviyeden koltuk altına doğru uzanan orta raller ve sol akciğer bazalinde kaba ral ve ronküsler mevcut olup, diğer sistem muayeneleri doğaldı.

Laboratuvar tetkiklerinde, lökosit 20.300/mm³, sedimentasyon 108 mm/saat, trombosit 681.000/mm³ idi; diğer tetkikler normal olarak sonuçlandı. PA akciğer grafisinde; sol orta zonda hilustan periferik kadar uzanan pnömonik infiltrasyon vardı (Resim 1). Toraks bilgisayarlı tomografi (BT)'de tiroid düzeyinin altından karinaya ve ana bronşlara kadar uzanan difüz duvar kalsifikasyonları mevcut olup, sol üst lob anterior ve apikoposterior segmentte içinde hava bronkogramları bulunan infiltrasyon görülüyordu (Resim 2). Solunum fonksiyon testlerinde (SFT); FVC: %121, FEV₁: %113, FEV₁/FVC: %74, FEF₂₅₋₇₅: %77 idi.

Hastaya toplum kökenli pnömoni tanısıyla ampicilin-sulbaktam (4 x 1 g IV) ve klaritromisin (2 x 500 mg

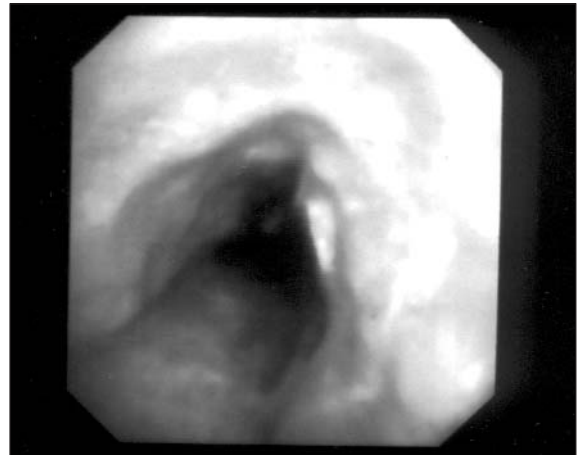


Resim 1. PA akciğer grafisinde; sol orta zonda hilustan periferik kadar uzanan pnömonik infiltrasyon izlenmektedir.

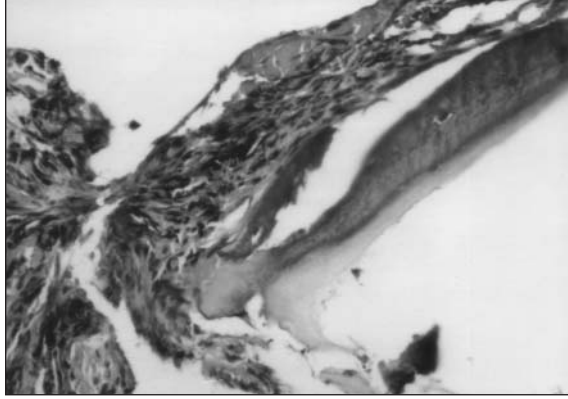


Resim 2. Trakeadaki difüz duvar kalsifikasyonlarını gösteren toraks bilgisayarlı tomografisi.

PO) tedavisi başlandı. Hastanın sigara hikayesinin olması ve toraks tomografisindeki görünüm nedeniyle yapılan bronkoskopisinde, trakea ve ana bronşlarda mukozada yaygın düzensizlik ve nodülerite, kıkırdak yapıda deformasyon görüldü (Resim 3). Trakeanın membranöz yüzünde mukoza doğaldı. Bronkoskopik biyopside, skuamöz metaplazi gösteren solunum yolu epiteli ve kalsifiye osteoid oluşuma sahip, TO ile uyumlu mukoza bağ dokusu tespit edildi (Resim 4). Trombositoz nedeniyle değerlendirilen hastanın kemik iliği biyopsisi sonucunda hematolojik bir patoloji saptanmadı. Ampicilin-sulbaktam tedavisi 10 güne, klaritromisin tedavisi ise 14 güne tamamlandı. Tedavinin 14. gününde çekilen kontrol akciğer grafisinde pnömonik infiltrasyonun iyileştiği görüldü (Resim 5). Yaklaşık 2 ay sonra trombosit sayısı normale düştü. Hasta-



Resim 3. Trakeal mukozadaki yaygın düzensizlik ve nodülerite, kıkırdak yapıda deformasyonun gözlemlendiği bronkoskopik görünüm.



Resim 4. Bronkoskopik biyopsi materyalinde kalsifiye osteoid oluşum (50 x HE).



Resim 5. Antibiyotik tedavisinden sonra çekilen kontrol PA akciğer grafisi.

nin mevcut endobronşiyal lezyonlarının solunum yolu obstrüksiyonu, hemoptizi gibi ciddi bulgulara yol açmaması nedeniyle herhangi bir tedavi yapılmaksızın izlenmesine karar verildi.

TARTIŞMA

Trakeobronkopatia osteokondroplastika, nadir görülen bir trakeal kalsifikasyon sebebidir. Lezyonlar histolojik olarak, kemik, kıkırdak veya aselüler protein matriksten oluşur, fokal veya difüz olabilir. Protrüzyonların altındaki mukoza genellikle normaldir. Nodüllerde hematopoez yapan kemik iliği tespit edilebilir. Hastalar çoğunlukla asemptomatik olmakla birlikte, öksürük (%66), hemoptizi (%60), dispne (%53), hırıltılı solunum (%30), boğaz kuruluğu, ses değişiklikleri ya da tekrarlayan pnömoni-lerle başvurabilirler (7,8). SFT'de hafif obstrüktif bozukluk izlenebilir. Olgumuz pnömoni atağının gerçekleştiği güne kadar asemptomatik kalmıştır

ve SFT değerlerinde herhangi bir bozukluk saptanmamıştır. Üst solunum yolu tutulumu nadir olmakla birlikte, bir çalışmada üst trakea ve larenkste %40 hastada patoloji tespit edilmiştir (7). Atrofik rinit ile birlikteliğinin sık olduğunu belirten yayınlar vardır (9). Olgumuzun yapılan KBB muayenesinde kulak aurikulasındaki senil kalsifikasyon dışında patoloji tespit edilmemiştir. TO, çoğunlukla entübasyon veya çeşitli nedenlerle yapılan bronkoskopiler sırasında ya da otopsilerde rastlantısal olarak görülür (10). Tanı, bronkoskopi, BT, manyetik rezonans görüntülemesi ve histopatolojik bulgular ile konur (11). Bizim olgumuzda da tanı, pnömoni nedenini araştırmak üzere yapılan bronkoskopi ve toraks BT değerlendirmesi sonucunda konulmuştur. Patolojik bulgular ve görüntüleme yöntemleri ile ayırıcı tanıya giren pulmoner amiloidoz, endobronşiyal sarkoidoz, papillomatozis, trakeobronşiyal kalsinozis ve tüberkülozun kalsifiye lezyonları ekarte edilmiştir. Yaşlılığa bağlı trakea ve bronş kalsifikasyonlarından trakea duvar kalınlığının artmaması ile ayırt edilir (12). Olgumuzda da protrüzyonlar dışında kalan trakea yapısı tamamen normal olarak görülmüştür. Mevcut trombositozun hematolojik herhangi bir patoloji ile açıklanamamış olması, lezyonlar arasında hematopoez yapabilecek kemik iliği dokusu varlığını düşündürmüştür. Ancak hastanın izleminde pnömoninin kontrol altına alınmasına paralel olarak trombosit sayısının düştüğü görülmüş, alınan biyopsi materyalinde de hematopoez yapan doku tespit edilmemiştir. Bu durumda trombositozun, infeksiyona sekonder akut faz yanıtı olduğu düşünülmüştür.

Solunum yolu obstrüksiyonu veya ciddi hemoptizi varlığında, trakeostomi, endoskopik ya da cerrahi rezeksiyon düşünülebilir (3). Olguda, pnömoni atağının ilk kez oluşu, uygun tedavi ile düzelmesi ve endobronşiyal mukoza çıkıntılarının solunum yolunu daraltacak düzeyde olmaması nedeniyle, cerrahi ya da endoskopik bir tedavi uygulanmasını gerektirmemiştir.

KAYNAKLAR

1. Seaton A, Seaton D, Leitch AG. Some less common pulmonary diseases. Crofton & Douglas's Respiratory Diseases. 4th ed. London: Blackwell Scientific Publications, 1989;1043-61.
2. Prakash UB. Bronchoscopy. 3rd ed. Philadelphia: Lippincott-Raven Publishers, 1997;520-1.

3. Akyol MU, Martin AA, Dhurandhar N, Miller RH. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: A case report and a review literature. *Ear Nose Throat J* 1993;72:347-50.
4. Tansel E, Keyf İA, Erdoğan Y ve ark. Trakeobronkopatia osteokondroplastika (bir olgu nedeniyle). *Solunum Hastalıkları* 1999;10:87-90.
5. Üstünsoy H, Şenkaya İ, Burma O ve ark. Trakeobronkopatia osteokondroplastika. *Tüberküloz ve Toraks Dergisi* 1999;47:104-6.
6. Ortaköylü G, Gençoğlu A, Tuncay E ve ark. Bir olgu nedeniyle trakeobronkopatia osteokondroplastika. *Solunum Hastalıkları* 2001;12:154-7.
7. Nienhuis DM, Prakash UB, Edell ES. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1990;99:689-94.
8. Marchesani F, Stacioli D, Pela R, Ranaldi R. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Monaldi Arch Chest Dis* 1993;10:127-8.
9. Vilkmann S, Keistinen T. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. Report of a young man with disease and retrospective review of 18 cases. *Respiration* 1995;62:151-4.
10. Lundgren R, Stjernberg L. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Chest* 1981;80:706-9.
11. Mariotta S, Pallone G, Pedicelli G, Bisetti A. Spiral CT and endoscopic findings in a case of tracheobronchopathia osteochondroplastica. *J Comput Assist Tomogr* 1997;21:418-20.
12. Meyer CN, Dossing M, Broholm H. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Respir Med* 1997;91:499-502.

Yazışma Adresi

Zeki YILDIRIM

İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi

Turgut Özal Tıp Merkezi

Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı

44069, MALATYA