

Trakeobronkopatia Osteokondroplastika; Bir Olgu Eřliđinde**Tracheobronchopathia Osteochondroplastica By A Case Presentation**

Meltem YILMAZ¹, Arif İŐCAN¹, Levent Cem MUTLU¹

ÖZET

Trakeobronkopatia Osteokondroplastika, trakeobronşial sistemde lümen içine uzanan osteokartilajinöz yapıda submukozal nodüllerin izlendiđi nadir görülen benign bir hastalıktır. Hastaların çođu asemptomatik olup klinik tablo deđiřkendir. Eforla nefes darlıđı, öksürük, hırıltılı solunum, tekrarlayan enfeksiyonlar ve hemoptizi gibi çeřitli solunum semptomları ile ortaya çıkabilir. Genel olarak beřinci ve altıncı dekatlarda, çođu zaman rastlantısal olarak teřhis edilir. Erkeklerde kadınlara göre 3 kat fazla görülmektedir. Bu olgu sunumunda 65 yařında bir erkek hasta eřliđinde Trakeobronkopatia Osteokondroplastika'nın klinik, radyolojik ve bronkoskopik özellikleri tartiřılmıştır.

Anahtar kelimeler: Fiberoptik bronkoskopi, trakea hastalıkları, trakeobronkopatia osteokondroplastika

ABSTRACT

Tracheobroncopatia Osteochondroplastica is a rare benign disease characterized by a large number of submucosal nodules in the tracheobronchial system, extending into the lumen. Most of the patients are asymptomatic and the clinical is variable. It can occur with various breathing symptoms such as dyspnea, cough, wheezing, recurrent infections, and hemoptysis. It is often diagnosed incidentally. The disorder is typically diagnosed during the fifth and sixth decades and has a 3:1 male predilection. In this case report, the clinical, radiological and bronchoscopic features of Tracheobroncopatia Osteochondroplastica were discussed with a 65-year-old male patient diagnosed.

Keywords: Fiberoptic bronchoscopy, tracheal diseases, tracheobronchopathia osteochondroplastica

¹Tekirdađ Namık Kemal Üniversitesi, Göđüs Hastalıkları Anabilim Dalı, Tekirdađ

Makale Geliř Tarihi / Submitted: Temmuz 2021 / July 2021

Makale Kabul Tarihi / Accepted: řubat 2022 / February 2022

Sorumlu Yazar / Corresponding Author:

Meltem YILMAZ
Adres: Tekirdađ Namık Kemal Üniversitesi, Göđüs Hastalıkları Anabilim Dalı, Namık Kemal Mahallesi, Kampüs Caddesi, No:1 Süleymanpařa, Tekirdađ, Türkiye
E-posta: breeze_43@hotmail.com
Tel: +90 545 434 3589
ORCID: 0000-0003-0314-4774

Yazar Bilgileri /Author Information:

Arif İŐCAN: 0000-0002-9005-5173, arifiscan59@gmail.com
Levent Cem MUTLU: 0000-0002-3535-5704, lcmutlu@hotmail.com

Olgu sunumudur. Etik kurul onayı gerekmemektedir. Hastadan yazılı onam alınmıştır.

GİRİŞ

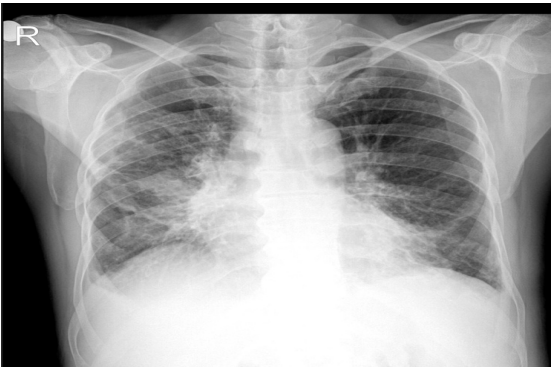
Trakeobronkopati Osteokondroplastika (TBO), büyük hava yollarının nadir görülen benign bir hastalığıdır. Etkilenen hastaların %55'inde tanı konulduktan sonra hastalık progresyonu görülmez¹. Tanı sadece bronkoskopik görünüm ile konulabilir. Osseokartilaginöz nodüller, hava yolu obstrüksiyonu ve tekrarlayan enfeksiyonlar, hemoptizi ve dispne dahil olmak üzere kalıcı solunum semptomlarına yol açabilir. Çoğu vaka müdahale gerektirmez. Bu olgu sunumunda 65 yaşında bir erkek hasta eşliğinde TBO'nun klinik, radyolojik ve bronkoskopik özellikleri literatür eşliğinde tartışılmıştır.

OLGU

Polikliniğimize nefes darlığı ve sağ göğüs kafesinde ağrı ile başvuran 65 yaşında erkek hastanın son altı aydır pnömoni nedeni ile 5 kez antibiyotik (kinolon ve sefalosporin grubu) kullanımı öyküsü mevcuttu. Üç haftadır antibiyoterapiye rağmen şikayetlerinde gerileme olmayınca tarafımıza başvurduğu öğrenildi. Öyküsünde kronik obstrüktif akciğer hastalığı (KOAH), diyaliz ihtiyacı gerektirmeyen kronik böbrek yetmezliği mevcuttu. KOAH için bronkodilatör ve inhaler kortikosteroid tedavi (salmeterol ve flutikazon) alıyordu. Meslek olarak koltuk döşemeciliği yapıyordu. Başvurusundan beş yıl önce sigarayı bırakan hastanın 45 paket/yıl sigara öyküsü mevcuttu.

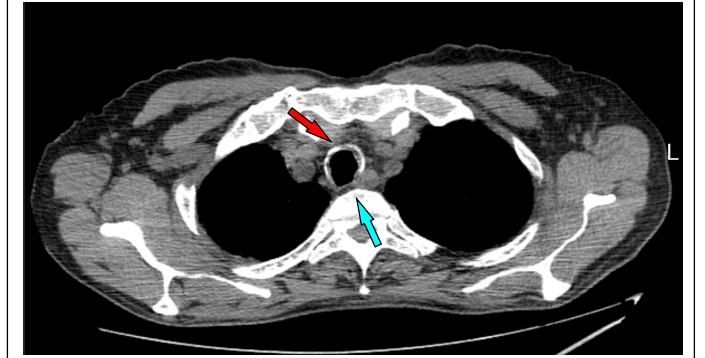
Başvuru anında vücut ısısı 36,8°C, nabız 85/dakika ritmik, solunum sayısı 18/dakika ve tansiyonu 140/85 mmHg, oda havasında solurken pulse oksimetre ile SpO2 %97 olarak ölçüldü. Solunum muayenesinde bilateral interskapüler alan ve bazalarda ronküs mevcuttu. Laboratuvar parametrelerinde CRP 101 mg/L, Hgb 7,7 g/dL, Hct %24, lökosit 5.310/uL, nötrofil 4.080/uL, lenfosit 880/uL, eozinofil 50/uL, trombosit 250.000 /uL, albümin 1,7 g/dL kalsiyum 7,0 mg/dL, üre 109 mg/dL, kreatin 4,75mg/d idi. Hastanın posteroanterior akciğer grafisinde sağ kostofrenik sinüs kütleşmiş ve sağ orta alt zonda infiltrasyonlar izlendi

(Resim 1).

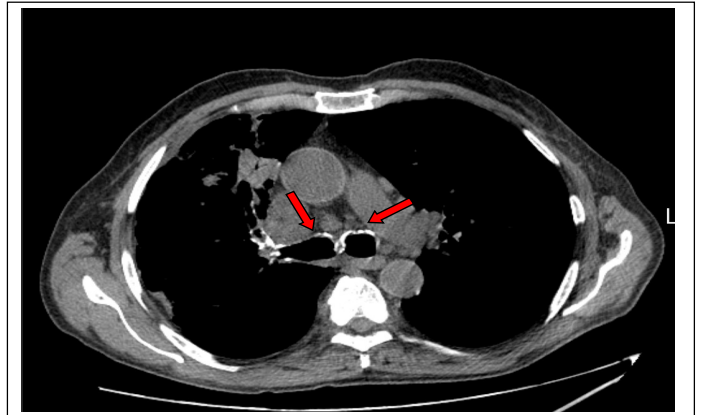


Resim 1: PA akciğer grafisinde sağ kostofrenik sağ orta alt zonda infiltrasyon izlenmektedir.

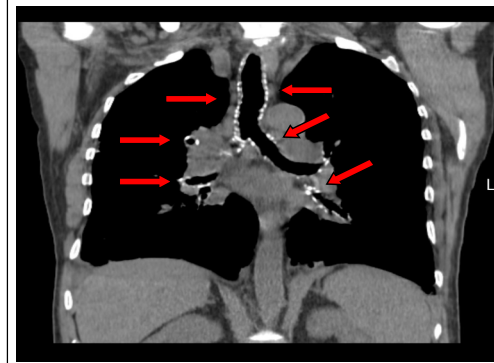
Kontrastsız çekilen toraks bilgisayarlı tomografisinde (BT); trakea, ana bronşlar ve lobar bronşların duvarında kalsifikasyon, sağda 28 mm plevral efüzyon, sağ orta lobda içinde hava bronkogramları olan konsolide alan, sağ üst lob posteriorunda plevraya oturan 22x11 mm boyutunda konsolide alan, sağ üst lob anteriorunda dağınık infiltrasyonlar izlendi



Resim 2: Toraks BT mediasten kesitinde trakea ön ve yan duvarında yaygın kalsifikasyon (kırmızı ok), membranöz trakea korunmuş (mavi ok).



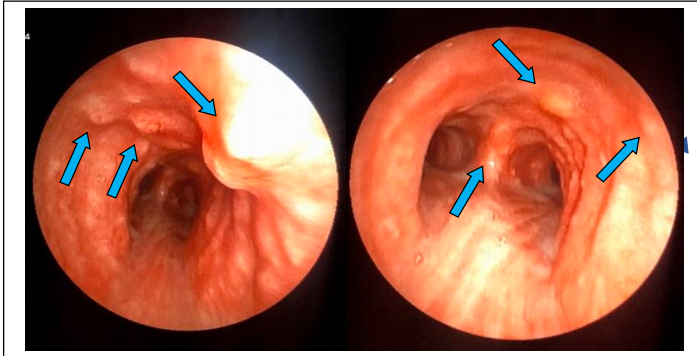
Resim 3: BT mediasten kesitinde ayırım karinasından itibaren sağ ve sol ana bronş duvarında kalsifikasyon (kırmızı oklar).



Resim 4: Koronal reformat görüntüde, ltrakea h duvarlarında, ana ve lobar bronşların duvarında kalsifikasyon (kırmızı oklar).

(Resim 2,3,4).

Antibiyoterapiye rağmen semptomları ve radyolojik regresyonu olmayan hastaya olası akciğer malignitesi açısından ileri tetkik amaçlı bronkoskopi yapıldı. Fiberoptik bronkoskopide trakeada ve her iki ana bronşta lümeneye uzanan multiple, beyaz renkli, sert yapılı submukozal nodüler lezyonlar izlendi



Resim 5 ve 6:Fiberoptik bronkoskopik incelemede, lateral ve anterior trakeal duvarda, ana karinada multipl, mukozadan kabarıklık, beyaz renkli, nodül lezyonlar (mavi oklar).

Resim 5,6

Trakeanın arka duvarı korunmuştu. Larenks normaldi. Endobronşiyal lezyon izlenmedi. Lavaj alındı fakat hasta işlemi tolere edemediğinden nodüler lezyonlardan biyopsi alınamadan işlem sonlandırıldı.

Hastanın bronş lavajı mikrobiyolojik incelemesinde ARB (aside rezistan basil) ve tüberküloz PCR (polymerase chain reaction) negatif ve tüberküloz kültüründe üreme olmadı ancak nonspesifik balgam kültüründe *Pseudomonas Aureginosa* üremesi saptanması üzerine Piperasilin-Tazobaktam 4x4,5gr 14 gün olacak şekilde tedavisi planlandı. Toraks BT ve fiberoptik bronkoskopi bulguları ile TBO tanısı konulan hasta antibiyoterapi tamamlanınca KOAH tedavisi düzenlenerek taburcu edildi. Ayrıca lavaj sitolojisinde malign hücre görülmedi. Takiplerinde solunum fonksiyon testleri, hastanın teste uyumsuzluğu nedeni ile optimal olarak yapılamadı. Pnömonik infiltrasyonlarında belirgin düzelme izlendi. Olgunun ve görüntülemelerin sunumu için hastamızdan sözlü ve yazılı onam alınmıştır.

TARTIŞMA

TBO, trakeobronşiyal sistemde lümen içine uzanan osteokartilajinöz yapıda çok sayıda submukozal nodüllerin izlendiği nadir görülen benign bir hastalıktır. Otopsi serilerinde insidansı 1/400-3/100, bronkoskopik serilerde 1/125-1/6000 oranında değişen aralıklarda bildirilmiştir. İlk kez 1857 yılında Wilks tarafından tanımlanan hastalık 1964 yılında sonra "trakeobronkopatia osteoplastika" terimi ile ifade edilmiştir². 2014'te yayınlanan, TBO ile ilgili literatürün gözden geçirildiği bir çalışmada yaklaşık 400 vaka bildirimi olduğu, Türkiye'den sadece 5 vaka bildirildiği görülmüştür¹. Bu olgu, ayda ortalama 80 bronkoskopi yapılan merkezimizde son 3 yıl içinde tanı alan tek olgudur.

Etiyolojisi kesin olarak bilinmemekle birlikte kronik inflamatuvar veya dejeneratif süreçler, kimyasal iritasyon, amiloidoz, enfeksiyon ve kalıtsal faktörler dahil olmak üzere çeşitli nedenler veya ilişkilendirmeler öne sürülmüştür³. Tiroid ve meme kanseri, Hodgkin Lenfoma gibi bazı malignitelerle TBO gelişimi arasında ilişki olduğunu bildiren çalışmalar da bulunmaktadır². Bizim olgumuzda KOAH ve kronik böbrek hastalığı (KBH) mevcuttu.

Hastaların çoğu asemptomatik olup klinik tablo değişkendir. Eforla nefes darlığı, öksürük, hırıltılı solunum, tekrarlayan enfeksiyonlar ve hemoptizi gibi çeşitli solunum semptomları ile ortaya çıkabilir. Hemoptizinin nedeni genellikle nodüllerin ülserasyonuna veya enfeksiyona sekonderdir. Genel olarak beşinci ve altıncı dekatlarda, çoğu zaman rastlantısal olarak teşhis edilir. Erkeklerde kadınlara göre 3 kat fazla görülmektedir³.

Solunum fonksiyon testlerinde, hava yolunda orta ve ağır dereceli daralma olmadığı sürece bozukluk izlenmez. Semptomatik olan hastalarda FEV1 ve FEV1/FVC düzeylerinde azalma görülebilir⁴. Radyografik bulgular değişkendir. Direkt akciğer grafisi genelde normal olmakla birlikte nadiren enfeksiyona sekonder konsolidasyon, atelektazi, trakeal nodülarite ya da daralma izlenebilir⁵. Toraks BT'de havayollarının ön ve yan duvarlarında düzensiz kalsifikasyonlar içeren nodüller "beaded appearance", hava yolu kenarlarının düzeninin bozulduğu görülebilir⁶. Bizim olgumuzda da toraks BT'de trakea, ana ve segment bronş duvarlarında kalsifikasyon dikkati çekmiştir.

En önemli tanısal yöntemler bronkoskopi ve toraks BT'dir. Toraks BT'de trakea arka duvarının korunduğu dens submukozal nodüler lezyonların saptanması ve bronkoskopide trakea 2/3 alt bölümde ön ve yan duvarları tutan, sert, beyaz renkli, düzensiz, 1-6 mm boyutunda ve çok sayıda nodüllerin izlenmesi ile tanı

kesinleşir, bronkoskopik biyopsi genellikle gerekli değildir⁷. Nodülün sert yapısından dolayı biyopsi zor olabilir. Buna rağmen lezyondan başarılı bir örneklemeyi tanıyı doğrulamaya yardımcı olur¹. Bizim hastamızda da trakea posterior duvarı korunmuştu. Histopatolojisinde hücreden fakir kalsifiye (kalsiyum fosfat) protein matris ve kartilaj, kemik, kan elemanları içeren submukozal nodüller izlenir¹. Hastamız işlemi tolere edemediğinden biyopsi yapılamadan işlem sonlandırılmıştır.

TBO'nun ayırıcı tanısında sarkoidoz, tüberküloz, endobronşiyal santral pulmoner kondroid hamartoma, osteokondrom ve trakeobronşiyal amiloidoz düşünülmelidir¹. TBO'lu hastalarda dikkat edilmesi gereken bir konu havayolu yönetimidir. Çünkü bu hastalarda sıklıkla kıkırdak proliferasyonundan kaynaklanan endotrakeal stenoz zor entübasyona neden olmaktadır. Yakın zamanda yayınlanan bir vaka takdiminde TBO'lu bir hastada bronkoskop kullanılarak rotasyonlu trakeal entübasyon yapıldığı belirtilmiştir. Ayrıca bu hastalarda daha küçük çaplı endotrakeal tüp kullanmak gerekebilir⁸.

TBO'nun progresyonu yavaştır. Prognoz genelde iyidir ve maligniteye dönüşme riski yoktur. Tedavi enfeksiyöz komplikasyonların antibiyotikle tedavisi ve obstrüktif lezyonlara yönelik tedavileri içerir⁷. Semptomlar önemli olduğunda veya lezyon diğer tıbbi tedavileri engellediğinde, entübasyonu engellemesi gibi, müdahale seçenekleri arasında açık ekzizyon, endobronşiyal Nd:YAG lazer fotoevaporasyonu veya endoskopik mekanik debülking yer alır. Ancak bu endoskopik tedaviler genellikle lezyonun yoğunluğu nedeniyle başarısız olur⁹. Literatürde stridorla başvuran genç bir hastanın, subglottik stenozunun lazerle debülking yapılarak tedavi edildiği bir vaka sunumu mevcuttur¹⁰. Yine bir vaka raporunda laringeal TBO'lu bir hastada tedavi için Sonapet ultrasonik aspiratörün yeni bir kullanımı bildirilmiştir¹¹. Biz olgumuzda uygun antibiyoterapi ile semptomların gerilemesini sağladık ve hastayı takibimize aldık.

TBO, özellikle inatçı öksürük, efor dispnesi, hemoptizi atakları ve tekrarlayan pulmoner enfeksiyonu olan ya da zor entübasyonla karşılaşılan hastalarda diğer olası nedenler tedavi edildiğinde veya ekarte edildiğinde göz önünde bulundurulması gereken nadir ve benign bir patolojidir.

KAYNAKLAR

- 1.Ulasli SS, Kupeli E. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: a review of the literature. Clin Respir J. 2014. DOI: 10.1111/crj.12166
- 2.Chroneou A, Zias N, Gonzalez AV, et al Tracheobronchopathia osteochondroplastica. An underrecognized entity? Monaldi Arch Chest Dis. 2008; 69(2): 65-9. DOI: 10.4081/monaldi.2008.398
- 3.Little B.P. Tracheal Diseases, In: Christopher M. Walker, Jonathan H. Chung eds. Book of Chapter Muller's Imaging of the Chest, 2nd Ed. Philadelphia: Elsevier. 56, 694-712.e2.
- 4.Tukiainen H, Torkko M, Terho EO. Lung function in patients with tracheobronchopathia osteochondroplastica. Eur Respir J 1988; 1: 632-5.
- 5.Mariotta S, Pallone G, Pedicelli G, et al Spiral CT and endoscopic findings in a case of tracheobronchopathia osteochondroplastica. J Comput Assist Tomogr 1997; 21:418-420. DOI: 10.1097/00004728-199705000-00015
- 6.Zack JR, Rozenshtein A (2002) Tracheobronchopathia osteochondroplastica: report of three cases. J Comput Assist Tomogr 26:33-36.
- 7.Prakash UB. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. Semin Respir Crit Care Med 2002, 23: 167-75. 3.
- 8.Takamori R, Shirozu K, Hamachi R, et al Intubation Technique in a Patient with Tracheobronchopathia Osteochondroplastica. Am J Case Rep. 2021 Jan 18;22:e928743. doi:10.12659/AJCR.928743.
- 9.Simmons C, Vinh D, Donovan DT, et al Trakeobronkopatia osteokondroplastika. Laringoskop 2016; 126: 2006-2009.
- 10.Natt, R. S., Helliwell, T., & McCormick, M. (2009). Tracheopathia chondro-osteoplastica—an unusual cause of stridor. The Journal of Laryngology & Otology, 123(9), 1039-1041.
- 11.Dharia, I., & Bielamowicz, S. (2021). Surgical Management in Tracheobronchopathia Osteochondroplastica: A Case Study. The Laryngoscope, 131(3), E911-E913.