

KEMİĞİN KİST HIDATİK HASTALIĞI

Dr. Recep MEMİK *, Dr. Abdurrahman KUTLU *, Dr. Salim GÜNGÖR **, Dr. Mahmut MUTLU *

* S.Ü.T.F. Ortopedi ve Travmatoloji A.B.D., ** S.Ü.T.F. Patoloji A.B.D.

ÖZET

Kist hidatik hastalığının kemik lokalizasyonu çok nadir olmasına karşın teşhis ve tedavi ile ilgili bir çok problemler görülür. Bu makalede, uzun kemiklerde (femurda 2, tibiada 1) kist hidatik hastalığı tutulumu olan 3 hasta sunuldu. Hastaların yaşları 8-52 yaşlar arasında idi. Bu hastalığın teşhis ve tedavi özellikleri yanında tedavi ve прогнозu tartışıldı.

Anahtar Kelimeler: Kemik, kist hidatik hastalığı.

SUMMARY

Hydatid Disease of Bone

Although an osseous location of hydatid disease is uncommon but it causes many diagnostic and therapeutic problems. Three patients with hydatid disease in which involved the long bones (femur 2, tibia 1) are reported in this article. The age of the patients ranged 8 to 52 years. The diagnostic and clinical features, as well as the treatment and prognosis of this disease were discussed.

Key Words: Bone, hydatid disease.

GİRİŞ

Kist hidatik hastalığı (ekinokokkus) sıkılıkla Ekinokokkus granulosus larvaları tarafından tek ve büyük bir kist şeklinde oluşturulur. Bu hastalığın Ekinokkus multiokularis (alveolaris) larvaları tarafından oluşturulan formu bir çok kistlerle karakterizedir. Çok daha az görülmeye kararın çok agresiv seyreden (1,2,3,4).

Kist hidatik hastalığında köpekler esas konakçı, koyun gibi hayvanlar ise ara konakçıdır. İnsanlar bu hastalığa direkt köpeklerle temas yahut köpeklerin dışkılardaki yumurtalarla bulaşmış yiyecek ve içecekler yolu ile yakalanır. Yumurtaların ince bağırsağa ulaşması ile embriyolar serbest kalır. Buralar ince bağırsak mukozasından geçerek venöz veya lansfatik yolla vücutun herhangi bir bölgesine yerlesir. 3 hafta içinde embriyolar larva şeklinde dönerek tipik kist oluştururlar (1,5,6,7).

Kist hidatik hastalığı çok yavaş ilerler ve uzun seneler semptom vermeyebilir. Karaciğer ve akciğer (%80) en sık tutulan organlardır (1,3,8,9). Kistler vakaların yaklaşık %60'ında birden fazla yerde yerleşmiştir (6,7,10). Kemik tutulumu ise %0.5-4 nisbetinde bildirilmiştir (2,7,9,11,12,13). İskelet sisteminde ise en sık uzun kemikler, vertebra, pelvis ve kaburgalarda görülür (4,5,6,10,11,13,14).

Kemiğin kist hidatik hastalığının teşhis ve tedavisinde bir çok problemlerle karşılaşılır. Serolojik testlerde %15-20 yanılmalar olabilir (7). Radyolojik

teşhisde yine bir çok zorluklar vardır. Bunda hastalığın çok nadir görülmemesi yanında farklı radyolojik bulguların olması önemli rol oynar (10,14). Teşhis çoğunlukla histopatolojik inceleme ile konur. Bu hastalık için halen ortaya konulmuş etkili bir tedavi şeklä yoktur. Cerrahi ve ilaç tedavisi hastalığı her zaman kontrol altına almayı bilir (3,5,6,8,15).

Bu çalışmada, kemiğin kist hidatik hastalığı olan iki yetişkin hasta yanında, değişik yönüyle ve bildeniz kadarı ile literatürde ilk olacak bir çocuk hasta sunuldu.

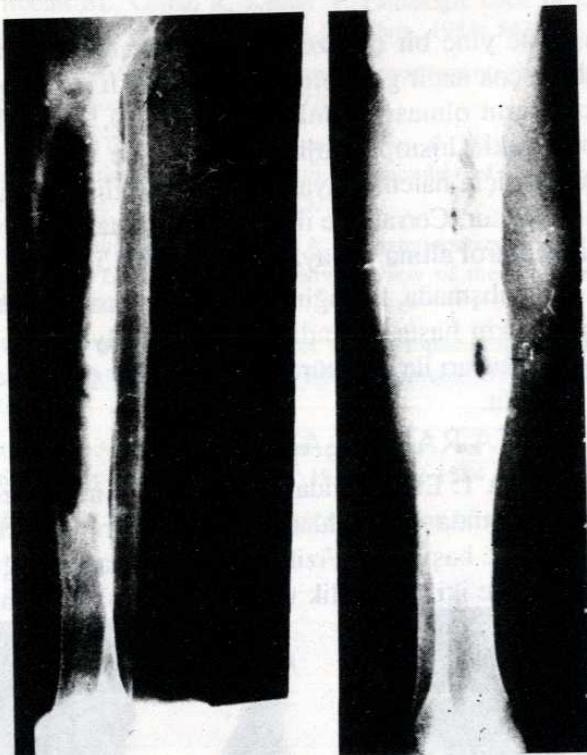
VAKA RAPORLARI

VAKA 1: Elli yaşında erkek hasta, kliniğimizde sağ bacağında dört yıldan beri olan ağrı ve şişlik şikayeti ile başvurdu. Fizik muayenede sağ bacağın ön yüzünde iki adet şişlik vardı (Resim 1). Sediman-



Resim 1: Hastanın sağ bacak ön yüzde, cilt altı mesafede kist hidatige ait iki tane şişlik görülmektedir.

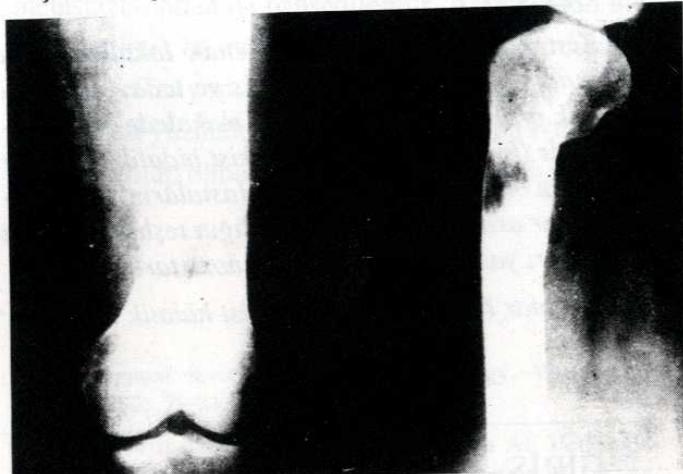
tasyon hızı 70 mm/1 saat idi. Anemi dışında diğer kan tetkikleri normal bulundu. Radyografide, sağ tibia üst kısmında, medullar kaviteyi tutan, farklı büyüklükde osteolitik sahalar vardı. Yeni kemik oluşumu izlenmedi (Resim 2). Açık biopside, kemik ve yumuşak doku uzantısında enfekte olmuş hidatik kistler görülcerek küretaj yapıldı. Saha betadin solusyonu ile yıkandı. Histopatolojik incelemede, kemiğin enfekte olmuş kist hidatigi rapor edildi. Ameliyat esnasında alınan pürülün materyalden E.Coli üredi. Hastaya antibiyotik ve Mebandazole tedavisi başlandı. Fakat oluşan sinustan pürülün akıntı ve kız veziküllerin drenajı devam etti. İki yıllık sürede iki defa daha küretaj ve sahanın betadin ile yıkanması işlemi tekrarlandı. Akıntı zamanla kesildi. Son dört yıldır hastanın şikayetleri kalmadı. Serolojik testler negatif geldi. Kontrol grafilerinde kemikteki osteolitik lezyonların ilerlemmediği görüldü.



Resim 2: Tibiada kist hidatige bağlı geniş osteolitik lezyon (Vaka 1)

VAKA 2: Otuzbeş yaşında bayan hastanın bir senedir sol diz üstünde sürekli olan ağrıları iki aydır artmış. Hastanın sistemik ve lokal muayenesinde bir özellik bulunmadı. Sedimentasyon hızı 46 mm/1 saat, lökosit sayısı $12.000/\text{mm}^3$ ve %3 eozinofili tesbit edildi. Radyografide sol femur distalinde bal peteği şeklinde osteolitik lezyonlar görüldü (Resim 3).

3). Ameliyatta lezyonun enfekte kist hidatik olduğu tesbit edildi. Saha betadin ile yıkandı ve küretaj yapıldı. Boşluk iliac kemik grefti ile dolduruldu. Kültürde üreme olmadığı Ameliyat sonrası antibiyotik ve Mebendazole 6 hafta verildi. Kontrol grafileride kistik yapının gerilediği görüldü. Hasta üç senedir hiç bir semptomu olmaksızın yürüyebilmektedir.



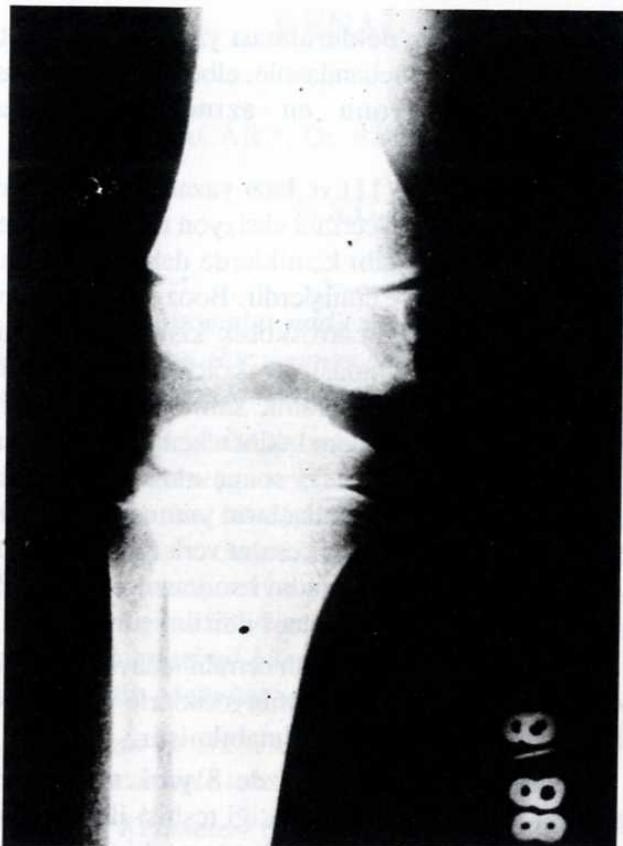
Resim 3: Femur alt ucunun önarka ve yan grafilerinde bal peteği şeklinde osteolitik lezyonlar görülmektedir (Vaka 2).

VAKA 3: Sekiz yaşında erkek hasta, iki aydır sol dizinde olan ağrı şikayeti ile kliniğimize başvurdu. Geçirilmiş belirgin bir travma ve enfeksiyon hikayesi yoktu. Fizik ve labaratuvar muayenelerinde normal bulgular tesbit edildi. Çekilen radyografilerde, sol femur distal epifizinde $2 \times 2 \text{ cm}^2$ lik sınırları belirgin tek br osteolitik lezyon görüldü (Resim 4). Kondroblastom ön teşhisi ile lezyona küretaj ve grefleme yapıldı. Histopatolojik incelemede yoğun inflamatuar hücre infiltrasyonu (genellikle plasma hücreleri) ile beraber nekrotik ve tahrif olmuş kemik trabekülleri içindeki kavitelerde Ekinokkus multiokularis larvaları görüldü (Resim 5). Ultrasonografik incelemede diğer organlarda kist hidatige rastlanılmadı. Ameliyat sonrası devrede altı hafta Mebendazole tedavisine başlanıldı. Hastanın takipleri halen devam etmektedir.

TARTIŞMA

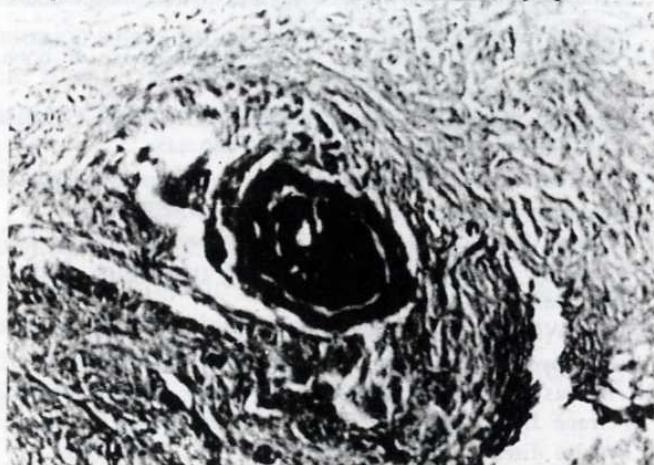
Kist hidatik hastalığının kemik tutulumu nadir görülür. Diğer organlara göre kemik lokalizasyonunun %0.5-4 arasında olduğu bildirilmiştir (2,7,9,11, 12,13). En sık yerleştiği yerler uzun kemikler, pelvis ve vertebralardır. Bunun yanında kaburga, skapula, kafa kemikleri ve falankslarda da izole vakalar bildirilmiştir (1).

Kist hidatigin en önemli özelliklerinden biri çok yavaş ilerlemesi ve uzun süre semptom vermeden



Resim 4: Femur distal epifizinde düzgün kenarlı osteolitik lezyon var.

kalmasıdır. İnfeksiyon ile semptomların başlangıcı arasında 53 yıllık bir sürenin geçtiği bir vakada bildirilmiştir (8). Hastalığın muhtemel başlangıcı çocukluk devresidir. Fakat genellikle yetişkinlik döneminde teşhis edilir. Sims ve ark. (16) ve diğer yazarlara göre tüm kist hidatik vakalarının %10-25'i çocukluk devresinde görülür (7,17). Bu oran kemik dışındaki organ tutulumlarında oldukça yüksek iken kemik tutulumu bu devrede çok nadir görülmektedir (5,6,9,11,18,19). Duran ve ark. (9), 21 hastadan oluşan serilerinde femur diafizini tutan 8 yaşında bir



Resim 5: Kemik trabekülleri arasında Echinokokus alveolaris skoleksleri izlenmektedir. H ve E x 200.
(Vaka 3).

çocuk bildirmiştirlerdir. Aynı yaştaki bizim vakamızda (vaka 3) femurun distal epifiz tutulumu vardır. Literatür taramalarımızda; epifizleri tutan kist hidatik kası bildiğimiz kadarı ile hiç yayınlanmamıştır.

Kemiğin kist hidatik hastalığının gelişimi üç devrede izlenebilir. Birinci devrede kemiğin medullar kısmının larvalar tarafından mikroveziküler infiltrasyonu ve büyümesi sonucu basınca bağlı harabiyet gelişir. Radyografik olarak üzüm salkımı şeklinde kemiğin içinde litik sahalar görülür. Yeni kemik oluşumu ve peryost reaksiyonu yoktur. Bu devrede genellikle herhangi semptom ortaya çıkmaz, ancak patolojik kırık oluşursa ani bir ağrı izlenir.

İkinci devre hastalığın geç devreleridir. Sekonder bakteriyel infeksiyon ve kemik iltihabı gelişimi görülür. Kemikte sekestr yoktur. Radyografik olarak skleroz ve hiperosteoz gelişir ve daha evvelki loküler görünümün yerine alır.

Üçüncü devrede abse oluşumundan sonra korteksin parçalanması ve büyüyen interosseöz kistlerin kemik çevresine veya subkutan mesafeye yayılımı gözlenir. Fistülize olmuş abse ile karakterizedir. Kist kemik çevresindeki yumuşak dokularda daha rahat gelişmeye devam eder. Buradaki büyümeye tipik ekinkokkus büyümeli şeklindedir ve etrafı kapsülle çevrilidir. Halbuki kemik içindeki büyümeye kapsül yoktur ve kalsifikasiyon görülmez (1,7).

Kist hidatığın kemik içindeki gelişiminin erken devrelerinde serolojik ve immünolojik testler genellikle negatiftir ve eosinofili görülmez. Geç devrelerde ise bu testlere cevap daha belirgindir. Tedavi ile hastalık eradik edildikten sonra müspet cevap alınabilir. Dolayısı ile serolojik ve immünolojik testler teşhis ve tedavi sonrası takipde tek başına yeterli olmamaktadır (7,8).

Kemikteki hidatik kistin yerlesimi genellikle unilocülerdir. Kistler kemik içinde uzun süre hapsedildiği için çoğunlukla sekonder kistler görülmez. Geniş bir zaman sürecinde bu kistler büyümeye devam eder ve trabeküler aralıkları şekillendir. Trabeküler kemikte tedricen rezorbsiyon, kortekste atrofi gelişir. Toricelli ve ark. (10) tutulumun lokalizasyonu ve derecesine göre üç farklı radyografik görüntü aldıklarını bildirmiştir. Kemiğin kist hidatığı radyografik olarak malign ve benign kemik tümörleri yanında spesifik (tüberküloz ve mantar) ve nonspesifik osteomyelit bulguları ile karışabilir. Anevrizmal kemik kisti, metastaz, miyeloma, dev hücreli tümör, anjoma ve fibröz displazi ile benzer radyografik bulgular verir. Kemikteki aşırı osteolitik lezyonlara ilaveten peryost reaksiyonu ve kalsifikasiyon varsa osteosar-

kom ve kondrosarkoma benzerlik gösterir (1,4,10,20,21).

Yetişkin olan iki vakamızda teşhis geç devrelerde konulmuş ve her ikisinde de kist hidatiğin sekonder olarak enfekte olduğu görülmüştür. Birinci vakada kistik oluşum bacağıñ ön kısmında cilt altı mesafeye yayılmıştır. Radyografik olarak tibiada, osteomyelitin iştiraki ile ileri derecede belirgin osteolitik sahanlar yanında, kemikte kalınlaşma ve skleroz gözlenmiştir. Femur distalinde tutulumu olan ikinci hastamızın radyografisinde yalnız multilocular osteolitik lezyonlar izlenmiştir. Femur distal epifizinde yerleşen kist hidatik vakamızda ise osteolitik lezyon lokalizasyon ve görünüm itibariyle kondroblastoma benzemektedir.

Kemiğin kist hidatiğinde teşhis kadar tedavide de zorluklar görülür. Tedavideki zorluklar kist hidatiğin malign neoplastik dokulara benzer şekilde lokal davranışsı sebebiyedir (20). Lokal invazyon, yüksek oranda lokal rekurrens ve fistül, patolojik kırık gibi komplikasyonlarla karakterizedir. Dolayısı ile yeterli cerrahi tedavi güç olmaktadır. Tedavi planında erken ve doğru teşhis yapabilmek çok önemlidir. Erken teşhis halinde kistin çıkarılması, tutulan kemiğin küretajı veya rezeksiyonu, sahanın betadin gibi bazı topikal solüsyonlarla yıkanması, oluşan boşluğun

kemik grefleri ile doldurulması yanında etkili antihelmintik ilaçlar (mebandazole, albendazole) ile hastalığın eradikasyonu en azından gerilemesi sağlanabilir (5,8).

Allred ve ark. (11) ve bazı yazarlar uzun kemik tutulumlarında geniş cerrahi eksizyon tavsiye ederken vertebra ve pelvis gibi kemiklerde daha konservatif bir yaklaşım tavsiye etmişlerdir. Booz ve ark. (21) ve Duran ve ark. (9), makroskopik kistlerin mekanik küretajla uzaklaştırılması ve skolekslerin formalin, gümüşnitrat veya hipertanik saline solusyonu ile kimyasal sterilizasyonu takiben kemik grefleri sahanın doldurulması ile iyi sonuç aldıklarını bildirmiştir. Antineelmintik ilaçların yumuşak doku kist hidatiklerindeki sonuçları cesaret vericidir. Kemik tutulumlarında da cerrahi tedavi sonrası kullanılan bu ilaçlarla ümit verici sonuçlar bildirilmiştir (5).

Vakalarımızda uygulanan cerrahi tedaviler yanında verilen mebendazole ve antibiyotiklerle (vaka 1 ve 2), hastalık kontrol altına alınabilmiştir.

Sonuç olarak, kliniğimizde 8 yıllık süre içinde görülen ve kemiğin kist hidatigi teşhisi ile kombine tedavi yapılan üç hastada tam bir iyileşme sağlanmıştır. Bunlardan femur distal epifizini tutan 8 yaşındaki vaka, lokalizasyon itibariyle literatürde ilk olarak bildirilmektedir.

KAYNAKLAR

1. Resnick D, Kyriakos M, Greenway GD. Tumors and tumor-like lesion of bone: Imaging and pathology of specific lesions. In: Resnick D, Niwayama G, eds. Diagnosis of bone and joint disorders. 2 nd ed. Philadelphia: WB Saunders, 1988: 3616-89.
2. Charles RW, Govender S, Naidoo KS. Echinococcal infection of the spine with neurol involvement. Spine 1988; 1:47-49.
3. Dorn R, Küsswetter W, Wünsch P. Alveolar echinococcosis of the femur. Acta Orthop Scand 1984; 55: 371-374.
4. Markakis P, Markaki S, Prevedorou D, Bouropoulou V. Echinococcosis of bone: Clinicolaboratory findings and differential diagnostic problems. Arch Anat Cytol Path 1990; 38: 92-94.
5. Szypryt E, Morris DL, Mulholland RC. Combined chemotherapy and surgery for hydatid bone disease. J Bone Joint Surg 1987; 69-B:141-144.
6. Saidi F. Surgery of hydatid disease: Hydatid cysts of bone. Philadelphia: WB Saunders, 1976: 338.
7. Beggs I. The radiology of hydatid disease. AJR 1985; 145: 639-648.
8. Ocete G, Guerrero A, Diaz-Peletier R, Burgos J, Bouzo J, Miguel CD. Experience in the treatment of osseous hydatidosis. Intern Orthop 1986; 10:141-145.
9. Duran H, Fernandez L, Gomez-Castresane F. Osseous hydatidosis. J Bone Joint Surg 1978; 60-A: 685-690.
10. Toricelli P, Martinelli C, Biagini R, Ruggieri P, De Cristofaro R. Radiographic and computed tomographic findings in hydatid disease of bone. Skeletal Radiol 1990; 19:435-439.
11. Allred AJ, Nisbet BW. Hydatid disease of bone in Australia. J Bone Joint Surg 1964;46-B:260-267.
12. El Gazzar A, McCreadie DWA. Hydatid disease in Kuwait. Br Med J 1962; 2:232-234.
13. Rong SH, Nic ZQ. Hydatid disease of bone. Clin Radiol 1985; 36:301-305.
14. Fyfe B, Amazon K, Poppiti R, Razzetti A. Intraosseous echinococcosis: A rare manifestation of echinococcal disease. South Med J 1990; 1:66-68.
15. Rollinson PD, Geytenbek RJ. Hydatid disease of bone. SAMJ 1987; 71:727-728.
16. Sim MS, Khayat G, Nasr AT, Jidejian YD. Hydatid disease in childhood. J Pediatr Surg 1971;6:440-448.
17. Carcassone M, Aubrespy P, Dor V, Choux M. Hydatid disease in childhood. J Pediatr Surg 1973; 5:1-35.
18. Karray S, Zlitni M, Fowles JV, Slimane N, Kassab MT, Rosset P. Vertebral hydatidosis and paraplegia. J Bone Joint Surg 1990; 72-B:84-88.
19. Apt WL, Fierro JL, Carderon C, Perez C, Mujica P. Vertebral hydatid disease. J Neurosurg 1976; 44:72-76.
20. Bouras A, Larde D, Mathieu D, Delepinc G, Denameur C, Ferrane J. The value of computed tomography in osseous hydatid disease. Skeletal Radiol 1984; 12:192-196.
21. Booz MK. The management of hydatid disease of bone and joint. J Bone Joint Surg 1972; 54-B: 698-709.