

Trakeobronkopati Osteokondroplastika

Gökhan Çelik¹, Özlem Özdemir Kumbasar¹, Füsün Ülger¹, Çetin Atasoy², Serpil Dizbay Sak³, Doğanay Alper¹

¹Ankara Tıp Fakültesi Göğüs Hastalıkları ve Tüberküloz AD, Ankara

²Ankara Tıp Fakültesi Radyodiagnostik AD, Ankara

³Ankara Tıp Fakültesi Patoloji AD, Ankara

ÖZET

Trakeobronkopati osteokondroplastika (TO) trakea ve bronşların lümeni içine doğru ilerleyen submukozal kemik ve kartilaj dokusu içeren nodüllerle tanımlanan nadir bir bozukluktur. Yineleyen solunum yolu infeksiyonu öyküsü olan TO'lu bir olgu klinik özellikleri, helikal bilgisayarlı tomografi (BT), sanal bronkoskopi ve bronkoskopi bulguları ile sunuldu.

Anahtar sözcükler: trakeobronkopatia osteokondroplastika, bronkoskopi, bilgisayarlı tomografi

Toraks Dergisi, 2002;3(2):200-203

ABSTRACT

Tracheobronchopathia Osteochondroplastica

Tracheobronchopathia osteochondroplastica (TO) is a rare disorder characterized by osseous and cartilaginous submucosal nodules projecting into the lumen of the trachea and bronchi. We present clinical features, helical CT, virtual bronchoscopy and fiberoptic bronchoscopy findings of TO in an elderly patient presenting with recurrent respiratory tract infections.

Key words: tracheobronchopathia osteochondroplastica, bronchoscopy, computed tomography

GİRİŞ

Trakeobronkopati osteokondroplastika (TO) trakea ve bronşların lümeni içine doğru gelişen, kemik ve kartilaj dokusu içeren submukozal nodüller uzantılarla tanımlanan, nedeni bilinmeyen nadir bir bozukluktur [1-8]. Genellikle benign bir durum olarak düşünülmektedir [4,7,9]. Günümüze kadar 371'den fazla olgu bildirilmiştir [6]. Olguların çoğunluğunda yakınma yoktur ve bronkoskopinin kullanıma girmesinden önce TO tanısının rastlantısal olarak otopside konulduğu bildirilmektedir [4-7].

OLGU

Yetmiş iki yaşında erkek hasta tekrarlayan ateş, öksürük, balgam yakınmaları ve başka bir merkezde çekilen toraks BT'de izlenen trakea nodülleri nedeniyle ayrıntılı inceleme için kliniğimize kabul edildi. Öyküsünde, öz ve soygeçmişinde başvuru yakınmaları dışında özellik yoktu. Fizik muayene sağ gözde dışa bakışta kısıtlılık dışında normaldi. Hastanın

laboratuvar incelemelerinde, tam kan sayımı, biyokimya sonuçları ve idrar mikroskopisi normaldi. Eritrosit sedimentasyon hızı 42 mm/saat, tüberkülin deri testi 12 mm bulundu. Arteriyel kan gazları, solunum fonksiyon testleri ve akımlı volüm eğrisi normaldi. Posteroanterior (PA) ve sol yan akciğer grafilerinde trakea lümeninde diffüz darlık dışında normal olarak değerlendirildi (Resim 1a ve 1b). Toraks helikal tomografisi ve sanal bronkoskopide trakea ön arka çapında artış, transvers çapında azalma, her iki yan ve ön duvarda nodülerite ve kalsifikasyonlar saptandı; trakea posterior membranöz duvarı normal olarak izlendi. Radyolojik olarak bu bulgular trakeobronkopati osteokondroplastika olarak değerlendirildi (Resim 2a ve 2b). Fiberoptik bronkoskopide trakeanın proksimalinde ön ve yan duvarlardan lümeneye kabarıklık, üzeri düzensiz, soluk renkli nodüller, sarkıt benzeri lezyonlar izlendi ve distale geçilmedi (Resim 3). Homojenizasyon yöntemi ile balgam ARB ve kültürleri üç kez negatif, balgam sitolojisi malignite yönünden negatif olarak bildirildi. Tanısal amaçlı rijid bronkoskopi ile trakea girişinden alınan biyopside yer yer dökülmüş örtücü epitel altında müsinöz bezler ve yoğun iltihabi hücre infiltrasyonu gösteren mukoza izlendi. Küçük alanlar şeklinde kartilaj görüldü. His-

Yazışma adresi: Yard. Doç. Dr. Gökhan Çelik
AÜTF Göğüs Hastalıkları ve Tüberküloz AD,
Mamak Cad. Cebeci, 06100 Ankara.
Tel: (0312) 319 00 27; Faks: (0312) 319 00 46
e-posta: celik@medicine.ankara.edu.tr

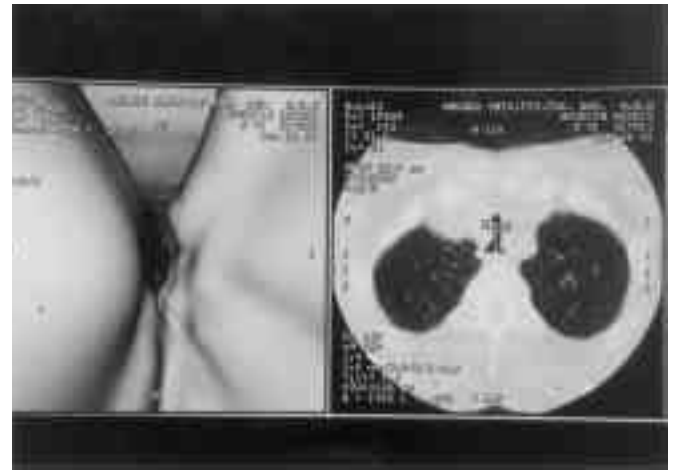


Resim 1a ve 1b. PA ve sol yan akciğer grafisi: Trakeada diffüz darlık.

topatolojik incelemede malignite, tüberküloz, amiloidoz, sarkoidoz, papillomatoz ile uyumlu bulgu saptanmadı.

TARTIŞMA

Makroskopik olarak ilk TO olgusu 1855 yılında Rokitansky tarafından tanımlanmıştır. Bronkoskopide boncuk dizisi



Resim 2a ve 2b. Helikal BT ve sanal bronkoskopi: Trakeanın ön ve yan duvarlarında nodüller ve kalsifikasyonlar.

uzantılar, kaya bahçesi, kaldırım taşı ya da sarkıt mağarası gibi polipoid nodüller görünümler izlenebilir [3,4,10]. Tipik olarak posterior duvar TO tarafından tutulmaz [3,4,5,6].

TO'nun etiolojisi ve patogenezi bilinmemektedir [1,4-11]. Genellikle 50 yaşın üzerindeki erkeklerde, kadınlara göre 3 kat daha sık görülür. TO lezyonları en sık (%75) trakeanın alt 2/3 kısmını tutar ve sıklıkla ana bronşların ilk kısmına yayılır. Genellikle larenks tutulmaz [1,4,5,11,12]. Bizim olgumuz 50 yaşın üzerindeki bir erkekti. Bronkoskopide kord vokallerden hemen sonra, trakeanın üst kısmında TO ile uyumlu lezyonlar izlendi.

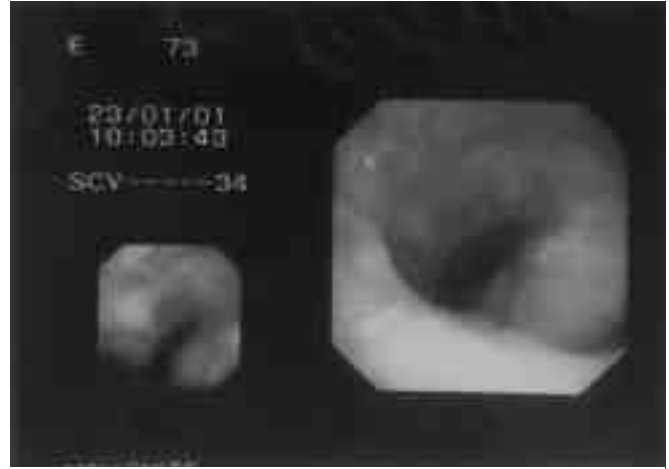
Genellikle hastaların yakınması yoktur [2, 4-12]. TO'da semptomların şiddeti nefes darlığına neden olan trakeal ve/veya bronşiyal obstrüksiyonun derecesine ve solunum sistemi enfeksiyonları gelişimine bağlıdır [1,4,11]. Seyrek olarak öksürük, balgam, hemoptizi, nefes darlığı, boğazda kuruluk, hırıltılı solunum, ses kısıklığı, yineleyen akciğer enfeksiyonları, ozena gibi belirtiler olabilir [2,4,11,12]. Zor entübe edilen olgularda TO da akla getirilmelidir [6]. TO,

orta lob sendromu olarak da klinik özellik gösterebilir [4]. Hemoptizi olguların %25'inde bulunur ve nodüllerin ülserasyonuna ya da akut enfeksiyona bağlı olabilir [8]. Genellikle fizik muayene normaldir [5]. Olgumuzun öyküsünde yineleyen alt solunum sistemi enfeksiyonlarına ait yakınmalar vardı, fizik muayene normaldi.

TO'da solunum fonksiyon testlerinde karakteristik bir bulgu yoktur ve olguların çoğunluğunda solunum fonksiyon testleri normal sınırlardadır. Akım-volüm eğrisi normal olabilir. TO'nun izlenmesinde solunum fonksiyon testleri yararlı olabilir [4,10]. Olgumuzun da solunum fonksiyon testleri normaldi.

Radyografik bulgular değişkendir [11]. Direkt akciğer grafisi genellikle normaldir, seyrek olarak enfeksiyona ait konsolidasyon, ateletazi, trakeal nodülerite ya da daralma izlenebilir [2,5,6]. Direkt akciğer grafisinde, özellikle yan grafide trakeobronşiyal ağaçta kalsifikasyon görülebilir [5,6,8]. Bronkoskopi ve bilgisayarlı tomografi kullanıma girmeden önce TO tanısı sıklıkla otopsi ile konulurdu [5-9]. Günümüzde TO'ya tanısal yaklaşımda en değerli incelemeler bronkoskopi ve bilgisayarlı tomografidir [5]. BT'de hava yollarının ön ve yan duvarlarında düzensiz kalsifikasyonlar içeren nodüller "beaded appearance", hava yolu kenar düzeni bozukluğu izlenir [2,8,11]. Trakea arka duvarında nodüller izlenmez [3,8]. BT görüntüsü her zaman tanı koydurucu değildir ve tanıda TO dışı nedenler de düşünülmelidir [5,8,11]. Bizim olgumuzda trakea ve büyük hava yollarının ön ve yan duvarlarında nodüler görünüm vardı ve arka duvar tutulumu yoktu, helikal BT görüntüleri TO ile uyumluydu. Son yıllarda bilgisayar software donanımlarındaki gelişmeler sayesinde luminal yapıların endoskopi benzeri görünümüleri BT aracılığıyla da yapılabilmektedir. Sanal bronkoskopi adı verilen bu yöntem en sık trakeobronşiyal ağaç ve kolonun değerlendirilmesinde kullanılmaktadır. Trakeobronşiyal ağacın tümör, stenoz gibi bir dizi patolojisinde yöntem bronkoskopi benzeri görüntüler sunmaktadır. İnce mukozal ayrıntının ve mukozal renklenmenin değerlendirilememesi ve biyopsi yapılamayışı gibi sınırlamaları bulunmakla birlikte, fiberoptik bronkoskopiyle geçilemeyen ağır stenozlarda stenoz distalinde kalan lümenin değerlendirilebilmesi ve lümenal patolojinin olası duvar dışı uzanımlarının görüntülenebilmesi tekniğin fiberoptik bronkoskopiye üstün taraflarını oluşturmaktadır [13]. Bu olguda da fiberoptik bronkoskopiyle değerlendirilemeyen distal hava yolları sanal endoskopik olarak görüntülenebilmiştir.

TO tanısı bronkoskopi ile kolayca konulabilir [3,8,11,12]. Nodüller sert olduğundan sıklıkla biyopsi yapmak zor olmaktadır [8]. TO, histopatolojik olarak hücreden yoksun kalsifiye (kalsiyum fosfat) protein matriks ve karti-



Resim 3. Trakea proksimalinde ön ve yan duvarlarda nodüler ve sarkıt benzeri lezyonlar.

laj, kemik, kan elemanlarını içeren, bronşiyal lümeneye taşan submukozal nodüllerle tanımlanan benign bir durumdur [4,10]. Bozukluğa sıklıkla mukozal kolumnar epitelin skuamöz metaplazisi eşlik eder [6,8,10]. Mikroskopik ekondrozis görülebilir [4,12]. TO tanısı, tipik bronkoskopik görünüm, benign seyir ve histopatolojik olarak submukozal anormal mineralizasyon gösteren kartilaj birikiminin saptanmasıyla konur [1,3].

TO'nun ayırıcı tanısında, amiloidoz, endobronşiyal sarkoidoz, kalsifiye tüberküloz lezyonları, papillomatoz ve trakeobronşiyal kalsinoz düşünülmesi gerekir [4]. Ayırıcı tanıda bronşiyal/trakeal tümör ve kronik obstrüktif akciğer hastalığı da bulunmaktadır [4,5]. Gereksiz cerrahi ve kemoterapiyi engellemek için neoplazma ayırıcı tanısında TO da düşünülmelidir [4]. Eşlik eden durumlar olarak tiroid tümörü, timoma, atrofik rinit, lenfoma, epidermal kistler bildirilmiştir [4,14]. Olgumuzda ayırıcı tanıya giren hastalıklar bronkoskopik biyopsilerin kültürleri ve histopatolojik değerlendirilmeleriyle dışlandı. Eşlik eden bozukluk saptanamadı.

TO'nun prognozu genellikle iyidir ve nodüllerin oluşturduğu hava yolu darlığına ya da stenozuna bağlıdır. TO yavaş ilerleyici bir durumdur [4-8]. Tedavi nadiren gerekir. Tedavi, enfeksiyöz komplikasyonların antibiyotikle tedavisi ve obstrüktif lezyonlara yönelik tedavileri içerir. Cerrahi rezeksiyon, biyopsi forsepsi ile hava yolu açıklığı sağlanması, stent uygulamaları ve laser tedavisi ile olumlu sonuçlar bildirilmiştir [8,10,12,15]. Hastamıza enfeksiyonlardan korunmaya yönelik immünizasyon önerildi ve yakınması olmadığından incelemeye alındı.

Sonuç olarak, TO nadir görülen bir hastalıktır. Karakteristik BT, sanal ve fiberoptik bronkoskopi görünümünün bilinmesi, trakeobronşiyal ağaçta stenoz oluşturacak diğer patolojilerden ayırt edilmesinde yararlı olacaktır.

KAYNAKLAR

1. Ennaifer-Jerbi E, Ayadı-Kaddour A, Logha M, et al. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica associated with a liver hydatid cyst broken in bronchi. *Ann Pathol* 2001; 21: 425-27.
2. Zack JR, Rozenshtein A. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica: report of three cases. *J Comput Assist Tomogr* 2002; 26: 33-36.
3. Sutor GC, Glaeb T, Eschenbruch C, Fabel H. *Pneumologie* 2001; 55; 563-67.
4. Meyer CN, Dossing M, Broholm H. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Respiratory Medicine* 1997; 91: 499-502.
5. Hodges MK, Israel E. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica presenting as right middle lobe collapse. Diagnosis by bronchoscopy and computerized tomography. *Chest* 1988; 94: 842-44.
6. Üstünsoy H, Şenkaya I, Burma O, ve ark. Trakeobronkopatia Osteokondroplastica. *Tüberküloz ve Toraks Dergisi* 1999; 47: 104-6.
7. Tukiainen H, Torkko M, Terho EO. Lung function in patients with tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Eur Respir J*. 1988; 1: 632-35.
8. Mariotta S, Pallone G, Pedicelli G, Bisetti A. Spiral CT and Endoscopic findings in a Case of Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Journal of Computer Assisted Tomography* 1997; 21: 418-20.
9. Eugene J.M. Case records of the Massachusetts general Hospital. *The New England Journal of Medicine* 1999; 341: 17
10. MolloyAR, McMahonJN Rapid progression of tracheal stenosis associated with tracheopathia osteo-chondroplastica. *Intensive Care Med*.1988; 15: 60-2.
11. Diseases of the airways. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica. Fraser RS. Pare JAP, Fraser RG, Pare PD. In *Synopsis of Diseases of the Chest* 2nd ed. W.B. Saunders company. Philadelphia. 1994; 631
12. Wilson AG. Diseases of the Airways. Tracheo(bronchopathia) osteo(chondro)plastica. Armstrong P, Wilson AG, Dee P, Hansell DM. In: *Imaging of diseases of the chest*. St Louis. Mosby-Year book. 1995: 819-20.
13. Buthiau D, Antoine E, Piette JC, et al. Virtual tracheo-bronchial endoscopy:educational and diagnostic value. *Surgical Radiologic Anatomy* 1996; 18: 125-31.
14. Karlıkaya C, Yüksel M, Kılıçlı S, Candan L. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica. *Respirology* 2000; 5(4): 377-80.
15. Kutlu CA, Yeğinsu A, Ozalp T, Baran R. Modified slide tracheoplasty for the management of tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Eur J Cardiothorac Surg* 2002; 21-42