

# Ankilozan Spondilitli Bir Olguda Kronik Nekrotizan Pulmoner Aspergillozis

## Chronic Necrotizing Pulmonary Aspergillosis in a Case with Ankylosing Spondylitis

Gökhan Perincek<sup>1</sup>, Osman Nuri Hatipoğlu<sup>1</sup>, Yener Yörük<sup>2</sup>, Emrah Batmaz<sup>1</sup>, Ayşegül İlçili<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Hastalıkları ve Tüberküloz Anabilim Dalı, Edirne, Türkiye

<sup>2</sup>Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Cerrahisi Anabilim Dalı, Edirne, Türkiye

<sup>3</sup>Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, Edirne, Türkiye

### ÖZET

Ankilozan spondilit, spondiloartropatilerin prototipidir. Pek çok sistemi tutabilen ankilozan spondilitin seyrinde, plöroparankimal tutulum nispeten nadir görülür. En sık gözlenen lezyon üst loblardaki fibro-büllöz hastalıktır. Ankilozan spondilitli hastaların oldukça önemli bir kesiminde (%50-65) kronik aspergillus kolonizasyonu bildirilmektedir. Pulmoner aspergilloma, ankilozan spondilitli hastalarda en sık görülen klinik form olup, invaziv pulmoner aspergillozis özellikle immunsistemi baskılanmış olan hastalarda görülür. Biz burada invaziv pulmoner aspergillozisin bir formu olan kronik nekrotizan pulmoner aspergillozis gelişen ankilozan spondilitli bir olguyu sunacağız.

(*Tur Toraks Der 2012; 13: 83-6*)

**Anahtar sözcükler:** Ankilozan spondilit, kronik nekrotizan pulmoner aspergillozis, hemoptizi

*Geliş Tarihi: 14.07.2009 Kabul Tarihi: 12.03.2010*

### ABSTRACT

Ankylosing spondylitis is a prototype of spondyloarthropathy tropes. During the progression of ankylosing spondylitis, which can destroy many systems, pleuroparanchymal involvement occurs rarely. The most commonly observed lesion is the fibro-bullous disease on the upper lobes. Chronic aspergillus colonization has been reported in a quite significant percentage of the patients with ankylosing spondylitis (50-65%). Pulmonary aspergilloma is the most observed clinical form in patients with ankylosing spondylitis. Invasive pulmonary aspergillozis occurs especially in patients with immunosuppression. Here we shall present a case with ankylosing spondylitis complicated by chronic necrotizing pulmonary aspergillozis which is a form of invasive pulmonary aspergillozis. (*Tur Toraks Der 2012; 13: 83-6*)

**Key words:** Ankylosing spondylitis, chronic necrotizing pulmonary aspergillozis, hemoptysis

*Received: 14.07.2009*

*Accepted: 12.03.2010*

### GİRİŞ

Aspergillus spor formasyonu ile üreyen ve her yerde bulunan küf mantarlarıdır; bunlar inhalasyonla hava yollarına ulaşırlar. Aspergillus türlerinin patogenezi komplekstir ve yeterince anlaşılammıştır. Hastalık gelişiminde inhale edilen organizmanın sayısı ve virülansı yanında konakçı savunmasının yeterliliği ana faktörlerdir. Aspergilloma, alerjik bronkopulmoner aspergillozis ve invaziv aspergillozis formları vardır [1-3]. Invaziv aspergillozis dört majör klinikopatolojik formda görülür. Bunlar; akut bronkopnömoni, akut trakeobronşit, kronik nekrotizan (semi-invaziv) pulmoner aspergillozis ve anjiyo-invaziv pulmoner aspergillozistir. Anjiyo-invaziv form daha çok lösemi vb. ciddi immun supresyon varlığında görülürken, kronik nekrotizan pulmoner aspergillozis KOAH, DM, steroid kullanımı gibi durumlarda görülebilmektedir [1,4].

Ankilozan spondilit (AS), patogenezi bilinmeyen bir bağdoku hastalığı olup spondilo artropatilerin prototipidir ve 20-40 yaş arası erkeklerde sık gözlenmektedir [5-7]. AS'li hastaların %2'sinden daha azında akciğer

tutulumu görülmektedir [8,9]. Radyolojik olarak akciğer tüberkülozu ve maligniteyi taklit edebilir. Fibro-büllöz tutulumlu olgularda, aspergillus sporları kaviter lezyon içinde kolonize olarak aspergillomaya neden olabilir [6]. Aspergilloma, AS'li hastalarda görülen en sık form olup kronik nekrotizan pulmoner aspergillozis formları nadir olarak görülmektedir [1].

### OLGU

Kırk üç yaşında erkek hasta, son 1 aydır tekrarlayan tarzda hemoptizi şikayeti olan hastanın çekilen postero-anterior (PA) akciğer grafisinde, sağ üst zonda kaviter lezyon ve infiltrasyon saptanması üzerine akciğer tüberkülozu ön tanısı ile servisimize yatırıldı. Öyküsünde, son 15 yıldır inflamatuvar karakterde bel ağrısı şikayeti mevcuttu. Olgumuza Nisan 2004'te fizik tedavi bölümüne ankilozan spondilit ve sol koksartroz tanısı konmuş ve mayıs 2004'te ortopedi kliniği tarafından koksartroz nedeni ile total kalça protezi operasyonu uygulanmıştı. Hastanın 16 yıl 1/2 paket/gün sigara içimi mevcuttu.

*Türk Toraks Derneği 9. Yıllık Kongresi, 19-23 Nisan 2006, Kemer, Antalya'da sunulmuştur.*

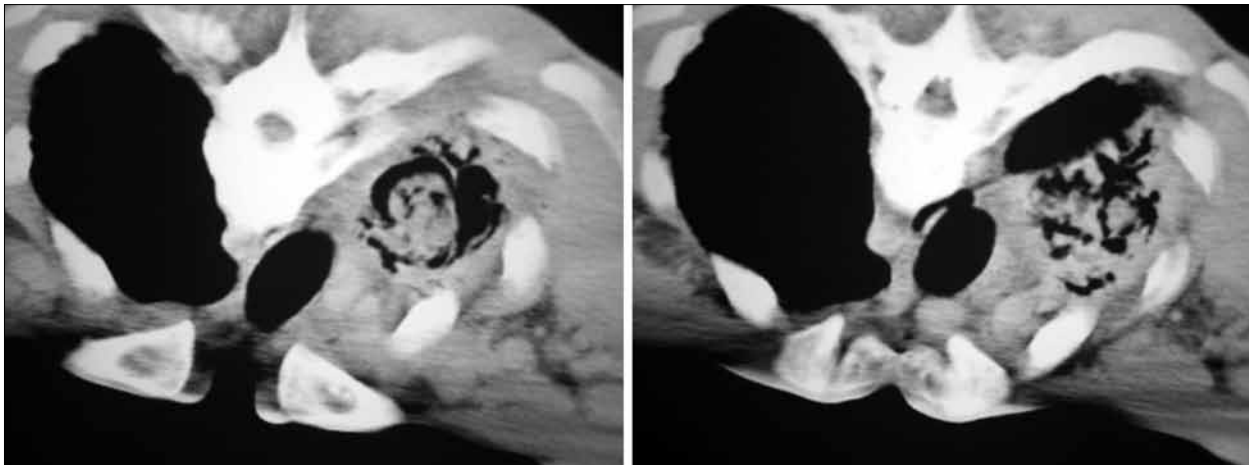
**Yazışma Adresi / Address for Correspondence:** Gökhan Perincek, Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Hastalıkları ve Tüberküloz Anabilim Dalı, Edirne, Türkiye Tel: +90 284 235 76 41 E-posta: drgokhanperincek@myynet.com

doi:10.5152/ttd.2012.20

Sistem sorgulamasında gece terlemesi yakınması vardı. Fizik muayenede; tansiyon arteryel 110/60 mmHg, nabız 84/dk, ateş 36.2°C, dakika solunum sayısı 14/dk, solunum sistemi muayenesinde, sağ üst de solunum seslerinde azalma mevcut. Lokomotor sistem muayenesinde; servikal eklem hareket genişliği (ROM) tüm yönlerde kısıtlı, ağrısız, torakal kifoz, açıklığı sola bakan skolyoz mevcuttu. Diğer sistem muayeneleri doğal olarak değerlendirildi. Laboratuvar incelemesinde; Wbc: 7700 /mm<sup>3</sup>, Hb: 11.3 gr/dL, Htc: 34.8, trombosit: 357000 /mm<sup>3</sup>, sedimantasyon: 26 mm/s olup diğer biyokimyasal parametreleri normal olarak gözlemlendi. PA akciğer grafisinde, sağ üst zonda kaviter lezyon ve infiltrasyon izleniyordu (Şekil 1). Hastaya hemoptizisinin olması, sağ üst zonda kaviter lezyon ve infiltrasyon gözlenmesi nedeniyle başlangıçta dördümlü anti-TB tedavisi başlandı. Hastanın yapılan tetkiklerinde; üç gün arka arkaya balgamda aside dirençli basil (ARB) incelemesi yapıldı. Çekilen bilgisayarlı akciğer tomografisi (Şekil 2, 3) ve toraks MR'ın (Şekil 4) pron ve supin pozisyonda alınan kesitlerde; kavite içinde pozisyon ile yer değiştiren ve apikal kavite lümenini tama yakın



Şekil 1. Sağ üst zonda kaviter lezyon ve infiltrasyon. Trakea sağa deviye

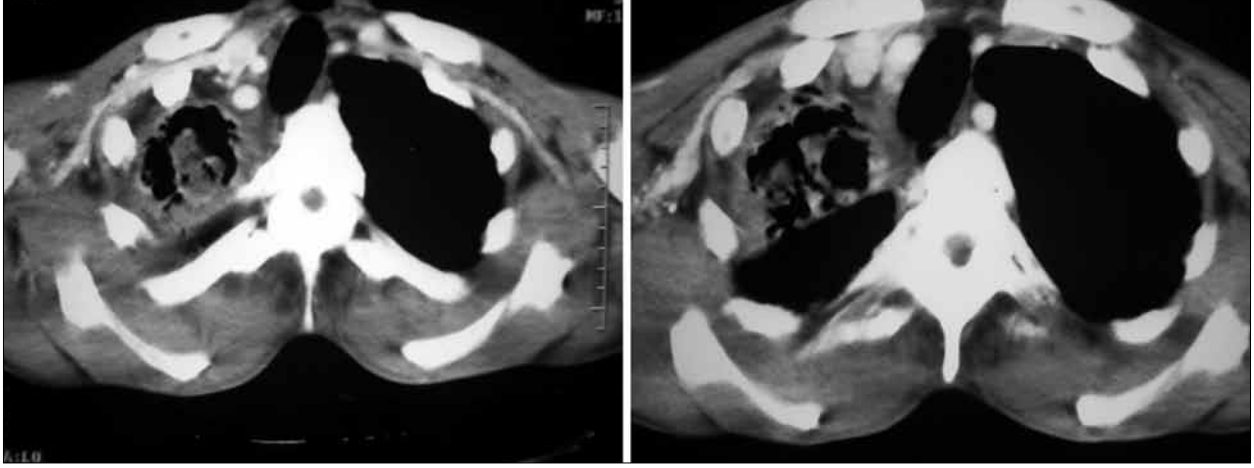


Şekil 2. Toraks BT pron pozisyonda; sağ üst lob apikal segmentte 4x3 cm boyutlarında içerisinde 2x1.5 cm boyutlarında heterojen doku dansitesinin izlendiği kalın duvarlı kaviter lezyon. Kavite çevresinde doku invazyonu ve hava bronkogramları içeren parankimal infiltrasyon bulguları ile pleural kalınlaşma

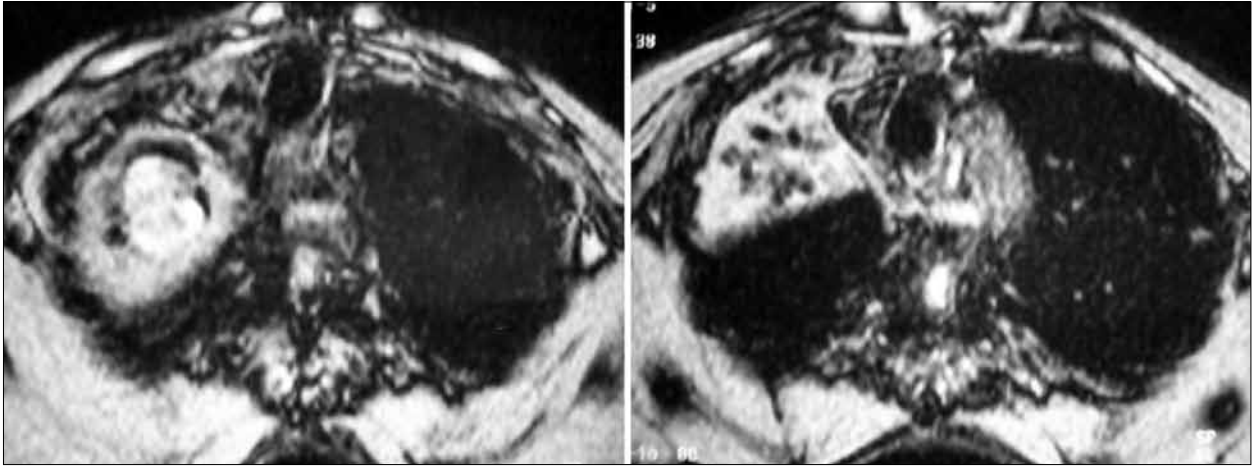
oblitere eden 2x1.5 cm boyutlarında fungus topu görünümü, kavite çevresinde doku invazyonunu gösteren ve hava bronkogramları içeren parankimal infiltrasyon bulguları ile birlikte pleural kalınlaşma saptanması üzerine tedavisine paranteral amfoterisin b (1 mgr/kg) eklendi. Hastaya tanınal amaçlı bronkoskopi yapıldı. Bronkoskopide; endobronşiyal lezyon gözlenmedi, sağ üst lob bronşu içinde eski kanama kalıntıları görüldü, apikal segment içinden selektif lavaj yapıldı. Yapılan lavaj incelemelerinde ARB ve mantar hif ve elemanları görülmedi. Kültürlerinde üreme olmadı. Bronş lavajının sitolojik incelemesinde atipik hücre gözlenmedi. Balgam ARB'lerinin negatif ve kültürlerinde üreme olmaması nedeni ile dördümlü anti-TB tedavisi kesildi. Hastanın tedavi altında hemoptizisinin devam etmesi üzerine, göğüs cerrahisi tarafından sağ üst lob wedge rezeksiyonu ve 2. 7. kot rezeksiyonu uygulandı (Şekil 5). Operasyon sonrasında alınan materyalin patolojik incelemesinde; nekrotik materyal ve fungal elemanlar (aspergilloz ile uyumlu), granülomatöz iltihap, fibrozis ve yabancı cisim dev hücre reaksiyonu ve düzenli kemik dokular gözlemlendi (Şekil 6). Hastanın takibinde bronkoplevral fistül gelişmesi üzerine yeniden opere edildi. Operasyon sonrası tedavisine devam edilen hasta şifayla taburcu edildi.

#### TARTIŞMA

Ankilozan spondilit seyrinde plöroparankimal tutulum nadir görülür. En sık gözlenen lezyon üst lob fibro-bülloz hastalık, miçetom formasyonu ve pleural kalınlaşmadır [5]. AS'li hastaların önemli bir kesiminde (%50-65) kronik aspergillus kolonizasyonu bildirilmektedir [6]. Aspergilloma AS'li hastalarda görülen en sık form olup kronik nekrotizan pulmoner aspergilloz formları nadir olarak görülmektedir. Klinik olarak genelde asemptomatik olmalarına rağmen öksürük ve tekrarlayan hemoptizi ataklarıyla başvurabilirler [1,9]. Radyolojik özelliklerinin tüberküloz ve maligniteye benzemesi nedeni ile ayırıcı tanısının yapılması gerekmektedir [10,11]. Bizim olgumuzda hasta, tekrarlayan hemoptizi şikayeti ile başvurdu.



**Şekil 3.** Toraks BT supin pozisyonda; sağ üst lob apikal segmentte 4x3 cm boyutlarında içerisinde 2x1.5 cm boyutlarında heterojen doku dansitesinin izlendiği kalın duvarlı kaviter lezyon. Kavite çevresinde doku invazyonu ve hava bronkogramları içeren parankimal infiltrasyon bulguları ile birlikte plevral kalınlaşma. Kavite içindeki lezyon pozisyona bağlı olarak posterior duvara doğru hareket etmiştir (Fungus topu)

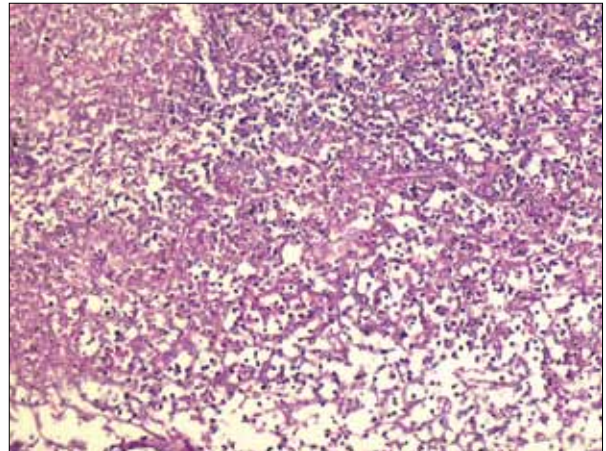


**Şekil 4.** Torakal MR; yağ baskılı sekansda sağ akciğer apikal segmentte yaklaşık 4x3 cm boyutlarında kalın düzensiz duvarlı, içerisinde 2x1.5 cm boyutlarında yumuşak doku intensitesinin izlendiği kaviter lezyon



**Şekil 5.** Sağ hemitoraksta volüm kaybı ve hava sıvı seviyesi

Yapılan bronkoskopisinde; endobronşiyal lezyon saptanmaması ve bronş lavaj sitolojisinde atipik hücre görülmesi nedeni ile maligniteden; balgam, lavaj ARB'lerinin negatif ve kültürde üreme olmaması nedeni ile akciğer tüberkülozundan ayırıcı tanısı yapılmıştır. İnvaziv pulmoner aspergillus tanısı histopatolojik olarak konmaktadır



**Şekil 6.** Doku invazyonu gösteren uzun, ince, ortalama 4 mikrometre çapında dallanan septalı içeller ve iltahabi hücre infiltrasyonları (invaziv aspergilloz ile uyumlu nekrotik materyal ve fungal elemanlar)

[1,2]. Olgumuzun tanısı, cerrahi olarak çıkarılan materyalin histopatolojik incelemesinde fungal elemanların (dallanan septalı miçel ve iltahabi hücreler) gözlenmesi ile konmuştur.

Semptomatik aspergillomanın tedavisi antifungal ilaçlardır. Medikal tedavinin yetersiz kaldığı durumlarda torasik cerrahi endikedir [6,12]. Olgumuzda çekilen toraks tomografisi ve toraks MR'ın, kronik nekrotizan pulmoner aspergillusla uyumlu olması üzerine paraneural amfoterisin b (1 mgr/kg) başlandı. Hemoptizi şikayetinin devam etmesi üzerine cerrahi uygulandı. İnvaziv aspergillus nedeniyle operasyon uygulanan hastalardaki en önemli komplikasyon nadir görülen bronkoplevral fistül gelişimi olup bizim vakamızda da operasyon sonrası bronkoplevral fistül gelişti ve ikinci kez operasyona alındı. Operasyon sonrası tedavisine devam edilen hasta şifayla taburcu edildi. Hastamız halen poliklinik kontrolleri ile takip edilmektedir.

Sonuç olarak; ankilozan spondilitli hastalarda klinik ve radyolojik olarak pulmoner tutulum bulguları saptandığında kronik nekrotizan (semi-invaziv) pulmoner aspergilloz formları da akla getirilmelidir.

#### KAYNAKLAR

1. Fishman AP, Elias JA, Fishman JA, et al. Fishman Göğüs Hastalıkları El Kitabı. 1. Baskı. İstanbul: Nobel Tıp Kitabevleri, 2005:820-38.
2. Bordow RA, Ries AL, Morris TA. Akciğer Hastalıklarında Klinik Sorunlar El Kitabı. 5. Baskı. Ankara: Bilimsel Tıp Yayınevi, 2001:211-8.
3. Mondon P, Thelu J, Lebeau B, et al: Virulence of Aspergillus fumigatus strains investigated by random amplified polymorphic DNA analysis. J Med Microbiol 1995;42:299-303. [\[CrossRef\]](#)
4. Fraser R; Pulmoner aspergilloz: Patolojik ve patogenez özellikleri. In Rosen P, Fechner R (eds): Pathology Annual Part 1. Norwalk, CT, Appleton & Lange, 1993; 231.
5. Şendur F, Karadağ F, Çildağ O, et al. Ankilozan spondilitli olgularda akciğer tutulumunun akciğer grafisi, solunum fonksiyon testi ve yüksek rezolüsyonlu bilgisayarlı tomografi ile araştırılması. Toraks Dergisi 2001;2:50-2.
6. Pamuk ÖN, Harmandar O, Tosun B, et al. A patient with ankylosing spondylitis who presented with chronic necrotizing aspergilloz. Clin Rheumatol 2005;24:415-9. [\[CrossRef\]](#)
7. Wolson AH, Rohwedder JJ. Upper lobe fibrosis in ankylosing spondylitis. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med 1975;124:466-71.
8. Rumancik WM, Firooznia H, Davis MS Jr, et al. Fibrobullous disease of the upper lobes: an extraskeletal manifestation of ankylosing spondylitis. J Comput Tomogr 1984;8:225-9 [\[CrossRef\]](#)
9. Franquet T, Müler NL, Flint JD. A patient with ankylosing spondylitis and recurrent haemoptysis. Eur Respir J 2004;23:488-91. [\[CrossRef\]](#)
10. Rosenow E, Strimlan CV, Muhm JR, et al. Pleuropulmonary manifestations of ankylosing spondylitis. Mayo Clin Proc 1997;52:641-9.
11. Pontier S, Bigay L, Doussau S, et al. Chronic necrotizing pulmonary aspergilloz and ankylosing spondylarthritis. Rev Mal Respir 2000;17:683-6.
12. Franquet T, Müler NL, Gimenez A, et al. Spectrum of pulmonary aspergilloz: histologic, clinical, and radiographic findings. Radiographics 2001;21:825-37.