



Progresif Seyirli Primer Omurga Kist Hidatiği:

Olgu Sunumu

Progressive Primary Spinal Hydatid Cyst: A Case Report

Tuğba ATAN, Özden ÖZYEMİŞÇİ TAŞKIRAN, Feride GÖĞÜŞ

Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi, Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı, Ankara, Türkiye

Özet

Kist hidatik, başlıca karaciğer ve akciğer olmak üzere vücudun diğer tüm organ ve dokularını da tutabilen parazitik bir hastalıktır. Kemik tutulumu oldukça nadir görülmekte olup, bunların yaklaşık yarısında omurga tutulumu vardır. Bu olgu sunumunda cerrahi ve medikal tedaviye dirençli primer omurga kist hidatiği nedeniyle ilerleyici parapleji tablosu gelişen bir olgu sunulmaktadır.

Anahtar Kelimeler: Primer omurga kist hidatiği, parapleji, nüks, rehabilitasyon

Summary

Hydatid disease is a parasitic disorder affecting all organ systems and tissues in the body, in particular the liver and lungs. Bone lesions are very rare and half of the bone lesions are observed in the spine. In this paper, we present a case of primary spinal hydatid cyst resistant to surgical and medical interventions leading to progressive paraplegia.

Key Words: Primary spinal hydatid cyst, paraplegia, recurrence, rehabilitation

Giriş

Kist hidatik, *Echinococcus granulosus* adlı sestod grubu parazitin neden olduğu zoonotik bir hastalıktır. Güney Amerika, Uzak Doğu, Orta ve Doğu Akdeniz’de endemiktir (1). Özellikle karaciğer ve akciğer tutulumu gösterir, ancak beyin, kalp ve kemikler dahil olmak üzere vücudun tüm organlarında bulunabilir (2). Kemik tutulumu nadir olup, %0,5 ile %4 arasında bildirilmektedir (1,2). Kemik tutulumu olan vakaların yaklaşık yarısında omurga tutulumu vardır (3). Hastalık genellikle akciğer, karaciğer ya da pelvik organlardan direkt yayılım ile omurgaya ulaşmaktadır, daha nadir olarak primer tutulum ile de ortaya çıkabilir (4).

Literatürde omurga tutulumu olan vakalar mevcuttur ancak çoğu sekonder yayılım sonucu gelişmiştir. Primer spinal kist hidatik ise oldukça nadir bildirilmiştir. Bu sunumda, nadir

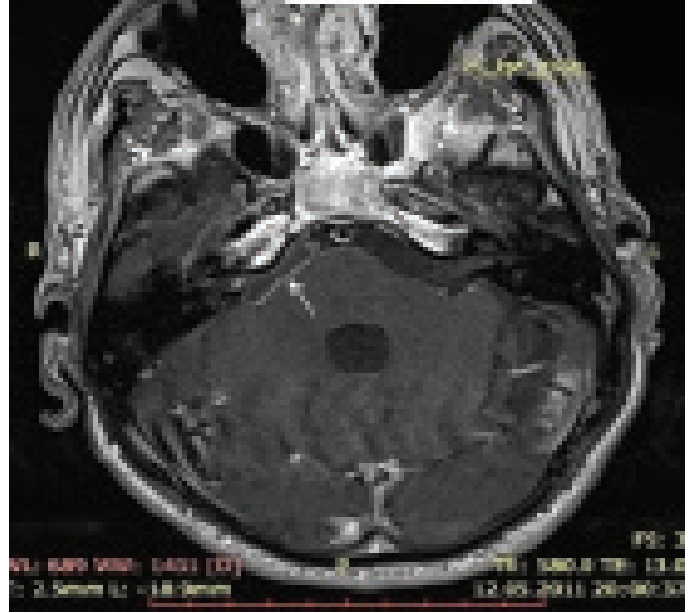
görülen primer omurga kist hidatiğine bağlı spinal kord basısı ve kranial tutulum gelişen uygulanan tedavi yöntemlerine dirençli ve ilerleyici yayılım görülen bir olgu sunulmaktadır.

Olgu Sunumu

Altmış yaşında erkek hasta bacaklarda kuvvetsizlik, kasılma ve yürüme güçlüğü, idrar ve gaita kaçırma şikayetleri ile başvurdu. 15 yıl önce sağ bacağında kuvvetsizlik olması üzerine yapılan incelemelerinde L1 vertebrada kist hidatik lezyonu saptanarak cerrahi uygulanmış. Abdominal organ ve akciğer tutulumu saptanmamış. Yaklaşık üç ay albendazol tedavisi uygulanmış, kuvvetsizliği azalmış ancak tam olarak gerilememiş. Sekiz yıl önce kuvvetsizliğin artması üzerine yapılan muayenesinde sağ alt ekstremitede kuvvet kaybı ve atrofi saptanarak L1 vertebradan nüks kist eksizyonu yapılmış. Postoperatif dönemde kist hidatik hemaglutinasyon testi pozitif olan hastaya albendazol (2 x 400

mg) tedavisi bir yıl süresince aralıklı olarak uygulanmış. Nörolojik defisitinde düzelme olmayan hastanın yedi yıl önce lomber manyetik rezonans görüntülemesinde (MRG) L1 vertebrada multiple kistik lezyon ile birlikte T12 vertebrada da lezyon saptanması üzerine T12 ve L1 vertebra korpuslarındaki kistlerin eksizyonu ile L1 laminektomi uygulanmış. Yaklaşık altı yıl süreyle sağ bacak kuvvetsizliğinde ilerleme olmamış ve bağımsız yürüyebiliyormuş. Son bir yıldır güçsüzlüğün her iki bacakta da olması ve zamanla bağımsız yürüyememe, idrar ve gaita kaçırma şikayetlerinin gelişmesi üzerine tüm omurga ve iç organ incelemeleri tekrarlanmış. Torakal MRG'de T4-T12 düzeyleri arasında spinal kanal içerisinde yer yer kistik alanlar ve L1 vertebra korpusunu tamamen işgal eden hipointens operasyon materyali izlenmiş. T4-T5 total laminektomi, epidural ve intradural kist eksizyonu uygulanmış. Operasyon sonrası albendazol (2 x 400 mg) tedavisi başlanmış. Abdomen BT'sinde karaciğerde kistik lezyonları saptanmış, ancak girişim düşünülmemiş. Ameliyattan altı ay sonra rehabilitasyon programına alınan hastanın muayenesinde; sağ bacakta daha belirgin olmak üzere her iki alt ekstremitte kaslarında atrofi mevcuttu. T12 altı hipoestezik idi. Alt ekstremitte kas kuvvetleri sağ diz ekstansiyonu (1/5) dışında 3/5 idi. Modifiye Ashworth Skalasına göre diz fleksör ve ayak bileği fleksör kaslarında 1. dereceden spastisite saptandı. Aşil ve patella refleksleri bilateral hipoaktif idi. Babinski refleksi bilateral lakayttı. Klonusu yoktu. Anal duyası mevcuttu ancak istemli anal kontraksiyonu yoktu. Parapleji (İnkomplet ASIA C) tanısı ile rehabilitasyon programına alındı. Kısa oturma dengesi olan hastanın uzun oturma dengesi ve ayakta durma dengesi yoktu. İki kişinin desteği ile kısa süre mobilize olabiliyordu. Üst ve alt ekstremitte güçlendirme egzersizleri, oturma ve ayakta durma dengesi, mobilizasyon ve transfer eğitimi planlandı. Yürüteç ve sağ dizi tam ekstansiyonda tutan statik diz- ayak bileği ortezi takılarak yürüme eğitimine başlandı. Sağ dizde daha fazla olmak üzere her iki bacakta kramplar olması nedeniyle baklofen 10 mg başlandı ve tedricen arttırılarak 30 mg'a çıkıldı. İdrar ve gaita inkontinansı olan hastaya temiz aralıklı kateterizasyon uygulanmaya başlandı. Yürüteç ile 4-5 metre mobilize olabilen hastanın yaklaşık bir ay sonra alt ekstremitte kas gücünde azalma başladı. Beraberinde halsizlik ve iştahsızlık gelişen hastanın rehabilitasyon programına uyumu azaldı. Enteral beslenmeye geçildi. Kas gücü seviyesi kalça çevresinde 2/5, diz ve ayak bileği çevresinde 0/5 kuvvetine geriledi, bunun üzerine baklofen dozu 10 mg'a inildi. Rutin laboratuvar incelemeleri normal olan hastanın kist hidatik aktivasyonu açısından istenen kist hidatik hemaglutinasyon ve ELISA testleri negatif geldi. Kranial, servikal ve torakal spinal MRG'leri tekrarlandı. Sağ pontoserebellar açıda prepontin sisterne doğru uzanan yaklaşık 25x6 mm boyutlarında kaudalde medulla anterioruna doğru uzanan, i.v. kontrast madde enjeksiyonu sonrası çepersel kontrast tutulumu izlenen, T2 serilerde kist ile uyumlu hipointens lezyon (Resim 1); C4 vertebra korpusu düzeyinden inferiorda T12 vertebra korpus düzeyine uzanan spinal kanal içerisinde spinal kordu basılayan ve kalibrasyonunda azalmaya neden olan kistik lezyon ve myelomalazi (Resim 2); L1 vertebra korpusunda operasyona sekonder defektif görünüm ile T11-12 ve T12-L1 düzeylerinde sağda nöral foramenleri doldurup, spinal kordu

sağda basılayan rezidü kistik lezyon (Resim 3) izlendi. Tekrar cerrahi girişim düşünülmedi. Rehabilitasyon programında ilerleme sağlanamayan hasta mevcut fonksiyonlarını korumaya yönelik ev egzersiz programı ve günlük yaşam aktiviteleri için enerji koruma teknikleri eğitimi verilerek tekerlekli sandalye ile taburcu edildi. Hasta ve yakınlarına gelişebilecek komplikasyonlar hakkında bilgi verildi ve belli aralıklarla kontrole çağrıldı.



Resim 1. T1-ağırlıklı aksiyal MRI görüntüsü. Sağ pontoserebellar açıda prepontin sisterne doğru uzanan yaklaşık 25x6 mm boyutlarında çepersel kontrast tutulumu izlenen kist ile uyumlu lezyon (beyaz ok).



Resim 2. T1-ağırlıklı kontrastlı MRI sagittal kesiti. C4 vertebra korpusu düzeyinden T12 vertebra korpus düzeyine kadar spinal kanal içerisinde uzanan, spinal kordu basılayan ve kalibrasyonunda azalmaya neden olan kistik lezyonlar.



Resim 3. T2-ağırlıklı sagittal MRI görüntüsü. L1 vertebra korpusunda operasyona sekonder defektif görünüm ile T11-12 ve T12-L1 düzeylerinde spinal kordu basılayan rezidü kistik lezyon.

Tartışma

Kist hidatik, köpek dışkıları ile kirlenen su, sebze ve meyveler aracılığı ile echinococcus granulosus yumurtalarının doğal ara konak olan koyun, keçi, sığır gibi hayvanlara ve nadir olarak da insanlara bulaşması ile oluşmaktadır (2,5). Daha çok erkeklerde ve 21-40 yaşlar arasında görülmektedir (6). Bizim hastamızın öyküsü derinleştirildiğinde 20 yaşına kadar kırsal bölgede yaşadığı ve 10 yıl köpek beslediği öğrenildi.

Kist hidatik belirgin semptom vermeden sessiz bir şekilde ilerleyen tanı konulması zor bir hastalıktır. Ülkemizde yapılan bir meta-analizde spinal kist hidatikli hastalarda görülen semptomların oranları; %73 alt ekstremitelerde güçsüzlük, %43 bel ağrısı, %32 mesane/barsak fonksiyon bozukluğu, %27 alt ekstremitelerde ağrı, %24 duyu bozuklukları ve %2 paravertebral spazm olarak bildirilmiştir (7). Ancak bu semptomların hiçbirisi tanı için tek başına yeterli değildir. Tanı ve takipte MRG ve bilgisayarlı tomografi (BT) en iyi görüntüleme yöntemleridir (5). Kist hidatiğin serolojik tanısında ELISA, Western blot, indirekt hemaglutinasyon testi veya polimeraz zincir reaksiyonu testleri kullanılır (1,2). Serolojik yöntemlerin duyarlılığı kemik tutulumunda düşüktür bu nedenle şüpheli olgularda tanının radyoloji ile desteklenmesi gerekmektedir. Bizim olgumuzda da ilk operasyon sonrasında tedavi başarısını değerlendirmek açısından bakılan kist hidatik hemaglutinasyon testi pozitif saptanırken takipler sırasında hastanın klinik durumunda kötüleşme ve radyolojik ilerlemeye rağmen hem kist hidatik hemaglutinasyon hem de ELISA test sonuçları negatif saptanmıştır.

Nadir görülen omurga tutulumunun %50'si torakal, %20'si lomber, %20'si sakral ve %10'u servikal bölgede görülmektedir (1,8,9). Bizim olgumuzda kist hidatik ilk saptandığında lomber seviyede lokalize iken 15 yıl içinde torakal, servikal ve hatta kranial bölgelere yayılım izlenmiştir. Hastamızın muayenesindeki nörodefisit ve spastisiteler birinci motor nöron hasarı ile açıklanabilirken alt ekstremitelerdeki reflekslerin hipoaktivitesi ve patolojik yanıtın yokluğu alt torakal ve lomber bölgelerdeki lezyonların yarattığı ikinci motor nöron hasarı ile açıklanabilir.

Braithwaite ve Less, spinal kist hidatikleri radyolojik tiplerine göre intramedüller, intradural ekstraparavertebral, ekstradural intraspinal, vertebral ve paravertebral olmak üzere beş grupta sınıflandırılmıştır (10). Vertebral ve paravertebral kist hidatikler, diğer organlardaki kist hidatiklerin kan dolaşımı ile yayılması sonucu ortaya çıkmakta ve daha sık görülmektedir. Diğerleri ise primer paraziter enfestasyon olup direkt portovertebral venöz şant teorisi ile açıklanmaya çalışılmakta ve oldukça nadir görülmektedir (7,11). Bizim olgumuzda ilk tanı konulduğunda ekstradural (intraspinal), vertebral ve paravertebral alanlarda tutulum izlenmiş olup akciğer ve karaciğerde tutulum saptanmamıştır. Primer omurga enfestasyonu olarak kabul edilen hastaya cerrahi tedavi ile birlikte albendazol tedavisi uygulanmış ancak klinik düzelme olmamıştır. Nüks saptanması üzerine tekrarlayan operasyonlar geçiren hastada kist hidatik lezyonu intradural alana da yayılım göstermiştir. Bu durum geçirilen çok sayıda cerrahi operasyonlar sırasında duraya yapışık olan kistler temizlenirken dura bariyerinin yırtılması ya da kemiği destrükte eden kistlerin duraya da destrükte etmesi ile açıklanabilir. Yapılan çalışmalarda total cerrahi rezeksiyona rağmen rekürrens oranı %30-40 oranında bildirilmiştir (12). Rekürrensi azaltmada cerrahi öncesi ve sonrasında antihelmintik tedavi tavsiye edilmektedir (13). Bu hastada medikal tedavi uygulanmasına rağmen nüksler gözlenmiştir. Parapleji ile seyreden spinal kist hidatikli olgularda mortalite oranı %14-58 olarak bildirilmiştir (14,15). İngiltere'de semptomların başlamasından sonra ortalama sağkalım süresi beş yıl, ortalama ölüm yaşı 41 olarak bildirilmiştir (14). Bizim olgumuzda 15 yıl içinde klinik düzelme saptanmamasına rağmen sağkalım süresinin uzun olması uygulanan medikal tedaviye bağlı olabilir.

Hastaya uygulanan ilk üç ameliyatta amaç kür sağlamak olmuştur ancak nüksler ve yayılımın önüne geçilememiştir. Bu durum hastalığın ilerlemesi ve/veya uygulanan cerrahi tekniğin yetersiz veya hatalı olması ile açıklanabilir. Son ameliyat ise hastanın yaşam kalitesini etkileyen semptomlarına yöneliktir ancak istenen başarı elde edilememiş ve alt ekstremitelerde güçsüzlüğü ilerlemiştir. Ayrıca bu hastada MRG görüntülemelerinde saptanan servikal yayılım ve ponsa yakın kranial tutulum nedeniyle parapleji tablosu ilerleyerek tetrapleji ve beyin sapı tutulumu gelişimi olasıdır.

Spinal kist hidatik hastaları cerrahi ve/veya medikal tedavileri yanında sıklıkla omurilik hasarı tablosu geliştiğinden rehabilitasyon programına alınmalıdır. Olgumuza eklem hareket açıklığı korunması, endüransı artırıcı egzersizler ile denge ve mobilizasyon egzersizlerini içeren rehabilitasyon programı

uygulanmıştır. Ancak istenilen yaşam kalitesi ve fonksiyonel iyileşme sağlanamamıştır.

Uygulanan cerrahi, medikal ve rehabilitasyon yöntemleri ile hastalığın yayılımının önüne geçilememiştir ve hasta tekerlekli sandalyeye bağımlı halde kür sağlanamadan taburcu edilmek durumunda kalmıştır.

Prognozu kötü olan bu hastalığın özellikle endemik bölgelerde ayırıcı tanıda düşünülmesi erken tanı ve tedavi açısından oldukça önemlidir. Uygulanan tedavi yöntemleri ile istenilen hedeflere ulaşılamaması ve mortalite oranının yüksek olması nedeniyle endemik bölgelerde öncelikle hastalıktan korunma ve eradikasyon önlemlerine ağırlık verilmelidir.

Çıkar çatışması

Yazarlar herhangi bir çıkar çatışması bildirmemişlerdir.

Kaynaklar

1. Salduz A, Koyuncu LO, Dikici F, Talu U. Long-term result of treatment for paraspinal and extradural hydatid cyst: a case report. *Acta Orthop Traumatol Turc* 2009;43:267-71.
2. King CH, Fairley JK. Cestodes. In: Mandell GL, editors. *Mandell, Douglas and Bennett's Principles and Practice of Infectious Diseases*. 7th ed. Philadelphia: Elsevier Churchill Living-stone; 2009. p. 3613-5.
3. Herrera A, Martínez AA, Rodríguez J. Spinal hydatidosis. *Spine* 2005;30:2439-44.
4. Karadereler S, Orakdögen M, Kiliç K, Ozdogan C. Primary spinal extradural hydatid cyst in a child: case report and review of the literature. *Eur Spine J* 2002;11:500-3.
5. Eseoğlu M. Spinal kist hidatik. *Tıp Araştırmaları Dergisi* 2009;7:175-6.
6. Lam KS, Faraj A, Mulholland RC, Finch RG. Medical decompression of vertebral hydatidosis. *Spine (Phila Pa 1976)* 1997;22:2050-5.
7. Turgut M. Hydatid disease of the spine: a survey study from Turkey. *Infection* 1997;25:221-6.
8. İşlekel S, Erşahin Y, Zileli M, Oktar N, Oner K, Ovül I, et al. Spinal hydatid disease. *Spinal Cord* 1998;36:166-70.
9. Baysefer A, Gönül E, Canakçi Z, Erdoğan E, Aydoğan N, Kayali H. Hydatid disease of the spine. *Spinal Cord* 1996;34:297-300.
10. Braithwaite PA, Lees RF. Vertebral hydatid disease: radiological assessment. *Radiology* 1981;140:763-6.
11. Bhojraj SY, Shetty NR. Primary hydatid disease of the spine: an unusual cause of progressive paraplegia. Case report and review of the literature. *J Neurosurg* 1999;91:216-8.
12. Turtas S, Viale ES, Pau A. Long-term results of surgery for hydatid disease of the spine. *Surg Neurol* 1980;13:468-70.
13. Golematis B, Lakiotis G, Persidou-Golemati P, Bonatsos G. Albendazole in the conservative management of multiple hydatid disease. *Mt Sinai J Med* 1989;56:53-5.
14. Mills TJ. Paraplegia due to hydatid disease. *J Bone Joint Surg Br* 1956;38-B:884-91.
15. Karray S, Zlitni M, Fowles JV, Zouari O, Slimane N, Kassab MT, et al. Vertebral hydatidosis and paraplegia. *J Bone Joint Surg Br* 1990;72:84-8.