

İMMUNGLOBULİN A VASKÜLİTİ TANILI ÇOCUK HASTALARDA SKROTAL TUTULUM: TEK MERKEZ DENEYİMİ

Scrotal Involvement in Pediatric Patients With Immunoglobulin A Vasculitis: A Single-Center Experience

Elif ARSLANOĞLU AYDIN¹, Nesibe Gökçe KOCAMAZ¹, İlknur BAĞRUL¹, Esra BAĞLAN¹, Emine Nur SUNAR YAYLA¹, Semanur ÖZDEL¹

ÖZET

Amaç: Bu çalışmada skrotal tutulumu olan immunglobulin A (IgA) vaskülitisi tanısı alan çocuk hastaların değerlendirilmesi amaçlandı.

Gereç ve Yöntemler: 1 Mart 2019- 1 Ekim 2022 tarihleri arasında IgA vaskülitisi tanısı alan, skrotal tutulumu olan hastaların klinik ve demografik özellikleri, skrotal tutulumu olmayan hastaların özellikleriyle karşılaştırıldı.

Bulgular: 159 erkek hastanın 15 (%9,5)'inde skrotal tutulum saptandı. Skrotal tutulumu olan hastaların skrotal tutulumu olmayanlara göre tanı yaşı daha küçüktü. Skrotal tutulumu olmayanlarda gastrointestinal tutulum daha yüksek saptandı. Hastaların %60'ında bilateral skrotal tutulum görüldü. Skrotal tutulumu olan hastaların yaklaşık dörtte üçü steroid tedavisi aldı. Hiçbir hastada relaps ve komplikasyon görülmedi.

Sonuç: IgA vaskülitisi seyrinde skrotal tutulum varlığında hastaların tedavi ve izlemi değişebileceği için IgA vaskülitisi tanısı alan erkek hastalarda skrotum muayenesi mutlaka yapılmalı ve ihmal edilmemelidir.

Anahtar Kelimeler: *İmmunglobulin A Vaskülitisi; Penis Tutulum; Skrotal Tutulum*

ABSTRACT

Objective: The study aimed to evaluate the characteristics of pediatric patients diagnosed with immunoglobulin A (IgA) vasculitis with scrotal involvement.

Material and Methods: Patients diagnosed with IgA vasculitis between March 1st, 2019 and October 1st, 2022 were included in this study. The clinical and demographic characteristics of patients with scrotal involvement were compared with those of patients without scrotal involvement.

Results: Scrotal involvement was detected in 15 (9.5%) of 159 male patients. Patients with scrotal involvement were younger at diagnosis. Gastrointestinal involvement was found to be higher in patients without scrotal involvement. Most patients had bilateral scrotal involvement. About three-quarters of patients with scrotal involvement received steroid therapy. No relapses or complications were observed in any of the patients.

Conclusion: Scrotal involvement is an important involvement for male patients diagnosed with IgA vasculitis. Approximately 10% of male patients have scrotal involvement and may need steroid treatment. Scrotal examination should be performed in male patients diagnosed with IgA vasculitis. Our treatment and follow-up approach may change in the presence of scrotal involvement.

Keywords: *Immunoglobulin A Vasculitis; Penile Involvement; Scrotal Involvement*

¹Ankara Etlik Şehir Hastanesi,
Çocuk Romatoloji Bölümü,
Ankara,
Türkiye.

Elif ARSLANOĞLU AYDIN, Dr.
(0000-0002-1287-4683)
Nesibe Gökçe KOCAMAZ, Dr.
(0000-0003-2149-3396)
İlknur BAĞRUL, Dr.
(0000-0002-5585-0198)
Esra BAĞLAN, Dr.
(0000-0001-5637-8553)
Emine Nur SUNAR YAYLA, Dr.
(0000-0003-1646-2341)
Semanur ÖZDEL, Dr.
(0000-0001-5602-4595)

İletişim:

Dr. Elif ARSLANOĞLU AYDIN
Ankara Etlik Şehir Hastanesi, Çocuk
Romatoloji Bölümü, Ankara, Türkiye.

Geliş tarihi/Received: 16.10.2023

Kabul tarihi/Accepted: 02.03.2024

DOI: 10.16919/bozoktip.1376780

Bozok Tıp Derg 2024;14(2):92-96

Bozok Med J 2024;14(2):92-96

Giriş

İmmünglobulin A vaskülit (IgAV), küçük damar duvarında immünglobulin A içeren immün komplekslerin birikmesiyle karakterize, deri, eklem, gastrointestinal sistem ve böbreklerin tutulumuyla seyreden, sıklıkla 10 yaş altında görülen, çocukluk çağının en sık görülen sistemik vaskülitidir (1). Deri, eklemler, gastrointestinal sistem ve böbrekler sıklıkla etkilenen organlardır (1). Trombositopenik olmayan palpabl purpura 2008 European League against Rheumatism/ The Paediatric Rheumatology International Trials Organisation/ Paediatric Rheumatology European Society kriterlerine göre zorunlu kriterdir (2). Hastalar kalça ve ekstremitelerde palpabl purpura, artrit, karın ağrısı ve nefrit gibi semptomlarla başvururlar (1). Hafif karın ağrısı, kusma, gastrointestinal sistemde kanamalar, invajinasyon, perforasyon gibi gastrointestinal tutulum bulguları hastaların %60-70'inde görülürken, %30-80 hastada böbrek tutulumu vardır (3). IgAV'de skrotal tutulum, penil tutulum, saçlı deri tutulumu, pulmoner tutulum diğer organ tutulumlarına göre daha az oranda görülür (4-6). Literatürde IgAV'de skrotal tutulum insidansı %2-38 arasında bildirilmiştir (7).

Bu çalışmada, hastanemiz çocuk romatoloji bölümünde takipli, skrotal tutulumu olan IgAV tanılı hastaların klinik ve laboratuvar özelliklerinin incelenmesi amaçlanmıştır.

GEREÇ VE YÖNTEMLER

Bu çalışmada 1 Mart 2019-1 Mart 2023 tarihleri arasında hastanemiz çocuk romatoloji kliniğine başvuran, IgAV tanısı alan ve kliniğimizde düzenli takip edilen erkek hastaların dosyaları geriye dönük olarak incelendi.

Hastaların klinik, demografik, laboratuvar verileri elektronik hasta kayıtlarından elde edildi. Skrotumda şişlik, ağrı ve hassasiyet varlığı skrotal tutulum olarak kabul edilirken, skrotumda sadece basit purpurik döküntü skrotal tutulum olarak değerlendirilmedi (8). Çalışma için hastanemiz Klinik Araştırmalar Etik Kurulu'ndan onay alındı (AEŞH-EK1-2023-240, Tarih: 26.07.2023). Çalışma Helsinki Bildirgesi ilkelerine uygun yapıldı. Çalışma geriye dönük olduğu için hastalardan onam alınmadı.

İstatistiksel Analiz

İstatistiksel analiz için SPSS (Statistical Package for the Social Sciences package program version 26.0, SPSS Inc., Chicago, IL, USA) paket programı kullanıldı. Normal dağılıma uygunluk Kolmogorov-Smirnov/Shapiro-Wilk testi ile değerlendirildi. Tanımlayıcı istatistiksel analiz için kategorik değişkenler sayı ve yüzde ile, sürekli değişkenler ise normal dağılıma uymayan değişkenler için ortanca (çeyreklerarası aralık) ve normal dağılan değişkenler için ortalama (\pm standart sapma) ile sunuldu. Kategorik değişkenler için Ki-Kare testi kullanıldı. $p < 0,05$ değeri istatistiksel olarak anlamlı kabul edildi. Normal dağılıma uyan sayısal değişkenlerin karşılaştırılmasında student t testi, normal dağılıma uymayan sayısal değişkenlerin karşılaştırılmasında Mann Whitney U testi kullanıldı.

BULGULAR

Çalışmaya dahil edilen 159 erkek hastanın 15 (%9)'ünde skrotal tutulum saptandı. Skrotal tutulumu olan hastaların IgAV tanı yaşı ortanca (çeyreklerarası aralık) değeri 84 (57-121) ay bulundu. Skrotal tutulumu olan ve olmayan hastaların klinik özelliklerinin karşılaştırılması tablo 1'de verildi. Tanı yaşı ortanca (çeyrekler arası aralık) değeri skrotal tutulum olan hastalarda 61 (50-78) ay, skrotal tutulumu olmayan hastalarda 85 (58-124) ay bulundu. Skrotal tutulumu olan hastaların tanı yaşı ile skrotal tutulumu olmayan hastaların tanı yaşı arasında istatistiksel olarak anlamlı fark saptandı ($p=0,004$). Skrotal tutulumlu IgAV hastalarının tanı yaşının daha küçük olduğu görülmüştür. Skrotal tutulumu olan hastaların %27'sinde, skrotal tutulumu olmayan hastaların %58'inde gastrointestinal tutulum gösterildi. Gastrointestinal tutulum açısından her iki grup arasında istatistiksel olarak anlamlı fark bulundu ($p=0,021$). Her iki grupta tanı anındaki laboratuvar parametreleri değerleri benzerdir.

Skrotal tutulumu olan 15 hastanın dokuzunda (%60) bilateral tutulum görüldü. Hastaların hepsinde skrotumda şişlik, kızarıklık ve hassasiyet mevcuttu (Figür 1). Dört (%27) hastada peniste şişlik, kızarıklık ve ağrı şeklinde penil tutulum görüldü. Skrotal ultrasonografi yedi (%47) hastaya yapıldı. Beş hastada epididimit, iki hastada hidrosel, ultrasonografi ile değerlendirilen hastaların tamamında skrotum cildi, cilt altı dokuları, fasyada ödem saptandı. On bir (%73) hastaya kısa

Tablo 1. Skrotal tutulumu olan ve olmayan hastaların klinik özelliklerinin karşılaştırılması

Değerlendirilen Parametreler	Skrotal Tutulumlu Hastalar (n=15)	Skrotal Tutulumu Olmayan Hastalar (n=144)	p değeri
Tanı yaşı, ay, ortalanca (çeyreklerarası aralık)	61 (50-78)	85 (58-124)	0,004*
Son 1 ay içinde geçirilmiş üst solunum yolu enfeksiyonu öyküsü olanlar, n (%)	8 (53)	47 (32)	0,1
Kas iskelet sistemi tutulumu olanlar, n (%)	10 (67)	74 (51)	0,2
Gastrointestinal sistem tutulumu olanlar, n (%)	4 (27)	83 (58)	0,02*
Böbrek tutulumu olanlar, n (%)	2 (13)	7 (5)	0,2
Hemoglobin, ortalama (±standart sapma) (g/dl)	13 (±1,1)	13,3 (±1,7)	0,7
Beyaz küre sayısı, ortalanca (çeyreklerarası aralık), (x1000/mm ³)	11,3 (9-15,1)	10,3 (8,4-13)	0,4
Platelet sayısı, ortalanca (çeyreklerarası aralık), (x1000/mm ³)	422 (350-524)	378 (321-449)	0,1
Absolu nötrofil sayısı, ortalanca (çeyreklerarası aralık), (x1000/mm ³)	7 (4,8-9,5)	6,1 (4,4-8,2)	0,4
Absolu lenfosit sayısı, ortalanca (çeyreklerarası aralık), (x1000/mm ³)	3 (2,2-4,6)	2,8 (2,2-3,8)	0,4
C-reaktif protein, ortalanca (çeyreklerarası aralık) (g/L)	7 (3-22)	8,2 (3-20,7)	0,9
Albümin, ortalama(±standart sapma) (g/dl)	4,2 (±0,4)	4,1 (±0,4)	0,7

*p<0,05 istatistiksel olarak anlamlı kabul edilmiştir.

Figür 1. Skrotal tutulum olan bir hastanın görüntüsü



sürekli steroid tedavisi (2 mg/kg metilprednizolon), dört (%27) hasta analjezik ve antibiyotik tedavisi aldı. Skrotal ultrasonografi yapılan yedi hasta çocuk cerrahisi bölümüne konsulte edildi ancak hiçbir hastaya cerrahi işlem yapılmadı. Skrotal tutulum olan bütün hastalarda tam iyileşme görüldü. Hiçbir hastada komplikasyon ve relaps görülmedi.

TARTIŞMA

Bu çalışmada skrotal tutulumu olan 15 IgAV hasta değerlendirildi. Skrotal tutulumu olan hastaların tanı

yaşlarının skrotal tutulumu olmayan hastaların tanı yaşlarına göre daha küçük olduğu ve skrotal tutulumu olan hastaların daha az oranda gastrointestinal tutulumu olduğu gösterildi. Çalışmamızda skrotal tutulum oranı %9 olarak bulundu. Ben-Sira ve arkadaşlarının çalışmasında hastaların %15'inde, Buscatti ve arkadaşlarının çalışmasında hastaların %19'unda skrotal tutulum bildirilmiştir (9, 10).

Literatürde skrotal tutulumla seyreden IgAV tanılı hastalar genellikle vaka bildirileri olarak paylaşılmıştır. Skrotal tutulumu olan ve olmayan IgAV tanılı hastaların

klinik özelliklerini karşılaştıran çok az sayıda çalışma vardır (4, 8, 9).

Skrotal tutulum genellikle akut bir durum olarak karşımıza çıkar. Buscatti ve arkadaşlarının çalışmasında skrotal tutulumu olan hastaların yaklaşık %90'ında tek taraflı, akut tutulum göstermişlerdir (9). İşlek ve arkadaşları dokuz skrotal tutulumlu hastanın sekizinde bilateral tutulum bildirmişlerdir (11). Bizim çalışmamızda %60 hastada bilateral tutulum görüldü. İmmunglobulin A vaskülitinde seyrinde bazen diğer klinik bulgular ortaya çıkmadan önce, ilk bulgu olarak skrotal tutulum karşımıza çıkabilir (12-15). Ha ve arkadaşlarının 26 skrotal tutulumu olan IgA vaskülit tanılı hastalarından iki tanesinde skrotal tutulum ilk bulgu olarak ortaya çıkmıştır (8). Çalışmamızda ise sadece bir hastada IgAV'nin karakteristik purpurik döküntüleri oluşmadan önce skrotumda ağrı ve kızarıklık şikayetinin başladığı, izlemde iki gün sonra her iki alt ekstremitede palpable purpura şeklinde döküntülerinin oluştuğu görüldü.

Sunar Yayla ve Bakkaloğlu çalışmalarında skrotal tutulumu olan ve olmayan hastalarda artrit, cilt altı ödem, gastrointestinal ve renal tutulumun gruplar arasında benzer olduğunu, skrotal tutulumu olan hastaların tanı yaşının daha küçük olduğunu göstermişlerdir (4). Çalışmamızda da skrotal tutulum olan grupta tanı yaşı ortanca değeri daha küçük bulunmuştur. Ha ve arkadaşları skrotal tutulumlu olgularda lokalize ödem ve merkezi sinir sistemi tutulumunun daha fazla olduğunu ortaya koymuşlardır (8). Buscatti ve arkadaşları, skrotal tutulumu olan grubun diğer organ tutulumları açısından skrotal tutulumu olmayan gruba göre farklı olmadığını göstermişlerdir (9). Bizim hastalarımızda ise renal ve kas-iskelet sistemi tutulumu her iki grupta benzer oranlarda görülürken, gastrointestinal sistem tutulumu skrotal tutulumu olan grupta daha az oranda görülmüştür. Bunun nedenlerinden biri skrotal tutulumu olan hastalara erken dönemde steroid tedavisi vermiş olmamız ve gastrointestinal tutulumun ortaya çıkmasını dolaylı olarak engellemiş olmamız olabilir.

Skrotal tutulum genellikle kendi kendini sınırlayan benign bir tablodur. Ancak bazı durumlarda kısa süreli steroid tedavisi kullanılabilir. Ben-Chaime ve arkadaşları kısa süreli steroid tedavisinin aşırı ödem ve ağrıyı hafiflettiği bir olgu bildirmişlerdir (11).

Ha ve arkadaşları çalışmalarında skrotal tutulumu olan 26 hasta değerlendirmişler, yedi hasta steroid, beş hasta antibiyotik, dokuz hasta hem steroid hem antibiyotik tedavisi alırken, beş hasta ilaçsız izlenmiştir. Skrotal semptomların iyileşmesinde tedavilere göre farklılık saptanmamıştır (8). Bizim çalışmamızda hastalarımızın büyük çoğunluğu (%73) kısa süreli steroid tedavisi almışlardır.

Çalışmamızın en önemli kısıtlılıklarından biri tek merkezli, retrospektif bir çalışma olmasıdır. Bir başka kısıtlılık ise bütün hastalara renkli doppler ultrasonografi yapılmamış olmasıdır. Ancak literatürde IgAV'de skrotal tutulumlu hastaları değerlendiren az sayıda çalışma vardır. Bu yüzden çalışmamızın literatüre katkı sağlayacağını düşünmekteyiz.

SONUÇ

İmmunglobulin A vaskülitinde seyrinde skrotal tutulum görülebileceği unutulmamalı ve IgAV tanısı alan erkek hastalarda skrotum muayenesi ihmal edilmemelidir. Ayrıca skrotal tutulumun IgAV'nin ilk presentasyonu olabileceği de unutulmamalıdır. IgAV'de skrotal tutulumda genellikle cerrahi müdahaleye gerek kalmaz. Skrotumda şişlik, kızarıklık şikayetleri olan hastalarda IgAV tanısı akılda tutulmalı, hastalar bu açıdan dikkatle muayene edilmelidir. Böylece hastaların gereksiz ve fazla tetkik edilmesinin önüne geçilebilir. Ayrıca skrotal tutulum IgAV'de çeşitli organ tutulumları açısından anlamlı olabilir. Ancak literatürde henüz bu konuda görüş birliği sağlanmış değildir. Organ tutulumları, tedavi protokolü ve prognoz açısından çok merkezli ve prospektif çalışmalara ihtiyaç vardır.

Tasdik ve Teşekkür

Yazarlar arasında herhangi bir çıkar çatışması yoktur.

KAYNAKLAR

1. Ozen S, Marks SD, Brogan P, Groot N, de Graeff N, Avcin T, et al. European consensus-based recommendations for diagnosis and treatment of immunoglobulin A vasculitis-the SHARE initiative. *Rheumatology (Oxford)*. 2019;58(9):1607-16.
2. Ozen S, Pistorio A, Iusan SM, Bakkaloğlu A, Herlin T, Brik R, et al. Paediatric Rheumatology International Trials Organisation (PRINTO). EULAR/PRINTO/PRES criteria for Henoch-Schönlein purpura, childhood polyarteritis nodosa, childhood Wegener granulomatosis and childhood Takayasu arteritis: Ankara 2008. Part II: Final

classification criteria. *Ann Rheum Dis* 2010;69(5):798-806.

3. Du L, Wang P, Liu C, Li S, Yue S, Yang Y. Multisystemic manifestations of IgA vasculitis. *Clin Rheumatol* 2021;40(1):43-52.
4. Sunar Yayla EN, Bakkalolu SA. Clinical features of paediatric immunoglobulin A vasculitis patients with scrotal involvement. *Mod Rheumatol*. 2023 Aug 25;33(5): 1016-20
5. Kaya Akca U, Batu ED, Serin O, Ipek OF, Aydın O, Teksam O, et al. Penile involvement of immunoglobulin a vasculitis/Henoch-Schönlein purpura. *J Pediatr Urol*. 2021;17(3):409.e1-8.
6. Di Pietro GM, Castellazzi ML, Mastrangelo A, Montini G, Marchisio P, Tagliabue C. Henoch-Schönlein Purpura in children: not only kidney but also lung. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2019;17(1):75.
7. Modi S, Mohan M, Jennings A. Acute Scrotal Swelling in Henoch-Schonlein Purpura: Case Report and Review of the Literature. *Urol Case Rep*. 2016;6:9-11.
8. Ha TS, Lee JS. Scrotal involvement in childhood Henoch-Schönlein purpura. *Acta Paediatr* 2007;96:552-5.
9. Buscatti IM, Abrão HM, Kozu K, Marques VLS, Gomes RC, Sallum AME, et al. Characterization of scrotal involvement in children and adolescents with IgA vasculitis. *Adv Rheumatol* 2018;58:38.
10. Ben-Sira L, Laor T. Severe scrotal pain in boys with Henoch-Schönlein purpura: incidence and sonography. *Pediatr Radiol*. 2000;30(2):125-8.
11. Ben-Chaim J, Korat E, Shenfeld O, Shelhav A, Jonas P, Goldwasser B. Acute scrotum caused by Henoch-Schönlein purpura, with immediate response to short-term steroid therapy. *J Pediatr Surg* 1995; 30:1509-10.
12. Clark WR, Kramer SA. Henoch-Schönlein purpura and the acute scrotum. *J Pediatr Surg*. 1986;21:991-2.
13. Palumbo E. Diagnosis of Henoch-Schonlein purpura in a child presenting with bilateral acute scrotum. *Acta Biomed*. 2009;80:289-91.
14. Akgun C. A case of scrotal swelling mimicking testicular torsion preceding Henoch-Schönlein vasculitis. *Bratisl Lek Listy*. 2012;113:382-3.
15. İşlek İ, Dilber C, Kalaycı AG, Albayrak D, Gürses N. Henoch-Schönlein Vaskülit ve Skrotal Tutulum. *Türkiye Klinikleri J Pediatr*. 1995;4(1):13-5.