



Omurgada metastatik hastalık belirteci olarak anevrizmal kemik kisti benzeri alanlar

Emre KARADENİZ¹, Simone COLANGELI², Riccardo GHERMANDI², Alessandro GASBARRINI²,
Emre ACAROĞLU¹, Stefano BORIANI²

¹Ankara Omurga Merkezi, Ankara;

²Rizzoli Enstitüsü, Onkolojik ve Dejeneratif Omurga Cerrahisi Kliniği, Bologna, İtalya

Anevrizmal kemik kistleri (AKKler) radyolojik özelliklerinin iyi tanımlandığı vasküler lezyonlardır. Sıvı-sıvı seviyelerinin olduğu kistler, damarlanması fazla AKK ve diğer primer kemik tümörlerinin her ikisinde de oldukça sık rastlanan bir MRG bulgusudur. Sıvı-sıvı seviyesi veren metastatik lezyonlar ise literatürde hiç tanımlanmamıştır. Bu çalışmamızda, metastatik lezyonlarda aksiyel iskelette sıvı-sıvı seviyesi veren 3 olgu bildiriyoruz. Olguların ikisinde tek seviyede, diğerinde birçok seviyede neoplastik hastalık ve MRG değerlendirmesinde sıvı-sıvı seviyesi veren belirgin kistler bulunmaktaydı. Trokar biyopsisi ile hastaların ikisi mide kanseri, diğeri meme kanseri tanısı aldı. Bu çalışmanın hazırlandığı sırada hastalar temel onkolojik tedavilerini almış ve iyileşmişlerdi.

Anahtar sözcükler: Anevrizmal kemik kisti; omurga; sıvı-sıvı seviyeleme; tümör.

Anevrizmal kemik kistleri (AKKler), kemiğin iyi tanımlanmış vasküler lezyonlarıdır ve kist benzeri duvarlar ile birbirinden ayrılan kan dolu ve anastomozlu kavernöz boşluklardan oluşurlar. Orijinlerinin displastik mi yoksa neoplastik mi olduğu kesin olarak ortaya konamamıştır.^[1] Uzun kemiklerin metafizleri ve kalkaneus gibi belli bazı kemikler bu lezyonlar için tipik yerleşim yerleridir ve genelde ikinci veya üçüncü dekada görülürler. Birden fazla kemik tutulumu ise nadirdir ve literatürde çok merkezli oluşum bildiren bir çalışma yer almamaktadır.

Jaffe, AKK'lerin altta yatan bir kemik lezyonu üzerine ikincil bir sorun olarak ortaya çıkabileceği olasılığını öne sürmüştür.^[2,3] Sekonder AKK olarak nitelendirilebilecek bu lezyonların; dev hücreli tümör, osteoblastoma, kondroblastoma ve fibröz displazi gibi kemiğin diğer agresif benign tümörleri zemininde ortaya çıkışı diğer yazarların gözlemleri ile de desteklenmiştir.^[1,4-6]

Standart röntgenografide bu lezyonlar, yerleştiği kemik korteksini destrükte eden fakat sınırlarını çevreleyen ince hattı sağlam bırakan litik lezyonlardır. Bilgisayarlı tomografi (BT) görüntüleme, kalsifiye kemik yüzeyi ve lezyonun sınırları ile osteoliz paterninin tanımlanmasında oldukça kullanışlı olmakla birlikte, kontrast madde verilmesi sonrası lezyon içinde sıvı-sıvı seviyesi veren görünüm AKK için tipiktir. Manyetik rezonans (MR) görüntüleme, sıvı-sıvı seviyesi veren görünüm kontrast madde verilmeden elde edilebilir. Kistik kavitenin içi, T1 ve T2 sekanslarında geniş bir intensite aralığında görünür ve bu, muhtemelen, lezyon içine kanamanın farklı zamanlarda olmasına bağlıdır.^[4,7] Bununla birlikte bu bulgular belirgin değildir ve AKK'ninkine benzer, altta yatan bir patofizyolojiye işaret edebilir.

Metastatik kemik lezyonları gibi diğer lezyonlarda AKK benzeri görünüm olması nadirdir. Omurgada ben-

Yazışma adresi: Dr. Emre Karadeniz, Ankara Omurga Merkezi, İran Cad. 45/2, 06700, Kavaklıdere, Ankara.

Tel: 0312 – 467 04 42 e-posta: ekaradenizmd@yahoo.com

Başvuru tarihi: 10.08.2011 **Kabul tarihi:** 25.04.2012

©2013 Türk Ortopedi ve Travmatoloji Derneği

Bu yazının çevrimiçi İngilizce versiyonu
www.aott.org.tr adresinde
doi:10.3944/AOTT.2013.2729
Karekod (Quick Response Code):



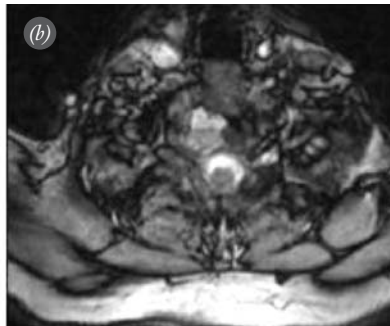
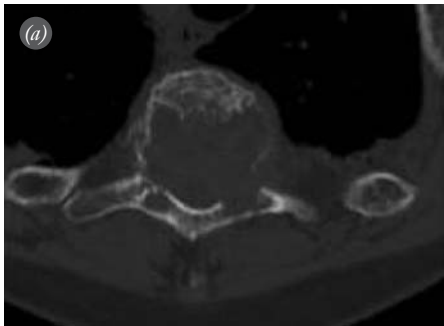
zeri bir fenomen, bildiğimiz kadarıyla, bugüne kadar İngilizce literatürde bildirilmemiştir.

Çalışmamızda metastatik lezyonlarda aksiyel iskelette sıvı-sıvı seviyesi veren üç hasta bildiriyoruz.

Olgu sunumu

Olgu 1

İlk olgumuz, Nisan 2009'da, son iki aydır ilerleyen sırt ağrısı şikayeti ile gelen 76 yaşında bir bayan idi. Hastanın herhangi bir neoplastik hastalık öyküsü yoktu. Standart röntgenografide patolojik bir bulgu bulunmayan hastanın çekilen aksiyel BT'sinde, Evre 3 agresif lezyonlar için tipik olan Lodwick Derece 3 osteolitik lezyonları (yayılma ve güve yeniği manzarası) saptandı (Şekil 1a). İlginç olarak, AKK tipik lokalizasyonu olan posterior element tutulumunun tersine çoklu lezyonların tümü anterior kolonda idi. Frontal iki boyutlu elektronik rekonstrüksiyonda, T2 vertebrada WBB sınıflandırmasına göre sektör 1'den 12'ye kadar uzanan ve A-D arası katmanları tutan patolojik kırık gözlemlendi.^[8] T2 ağırlıklı MR görüntülerinde, C6'dan T2'ye kadar vertebra gövdelerinde sıvı-sıvı seviyesi veren birçok odak vardı (Şekil 1b). Diğer lezyonlar yönünden kemik taraması ve torasik BT'de patolojik bulguya rastlanmadı. Hastanın hastaneye başvurmasının hemen ardından, ani başlayan ve hızlı ilerleyen paraparezi gelişti. Bunun için hastaya transfemoral yolla tiro-serviko-skapular dal selektif kateterizasyonu ile arteriyel embolizasyon sonrası acil küretaj ve debulking işlemi ile stabilizasyon yapıldı. Cerrahi işlem öncesi polivinil alkol kullanılarak lezyonun tamamen avasküler hale getirilmesi cerrahiye daha kolay hale getirdi. Başka bir cerrahi komplikasyonla karşılaşmadı ve AKK benzeri kistik alanları olan göğüs adenokarsinomu metastazı kesin tanısı konuldu. Cerrahiden altı ay sonra, hasta hala medikal onkolojik tedavisini almakta idi, şikayeti ve nörolojik defisiti yoktu (Frankel skoru E) ve çok iyi bir yaşam kalitesine sahipti.



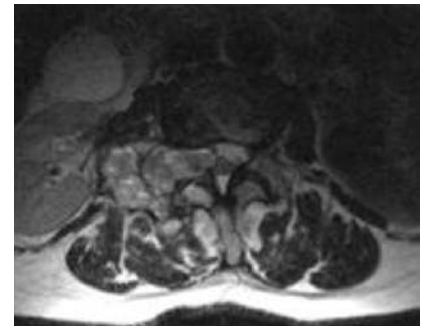
Şekil 1. Olgu 1'in görüntüleri. **(a)** Foramene uzanan ve laminanın ön korteksine hasar veren litik lezyonun aksiyel BT taramasındaki görünümü. **(b)** Aynı lezyonun T2 ağırlıklı aksiyel MRG'sinde kistik lezyon içinde tipik sıvı-sıvı seviyesi veren görüntüsü.

Olgu 2

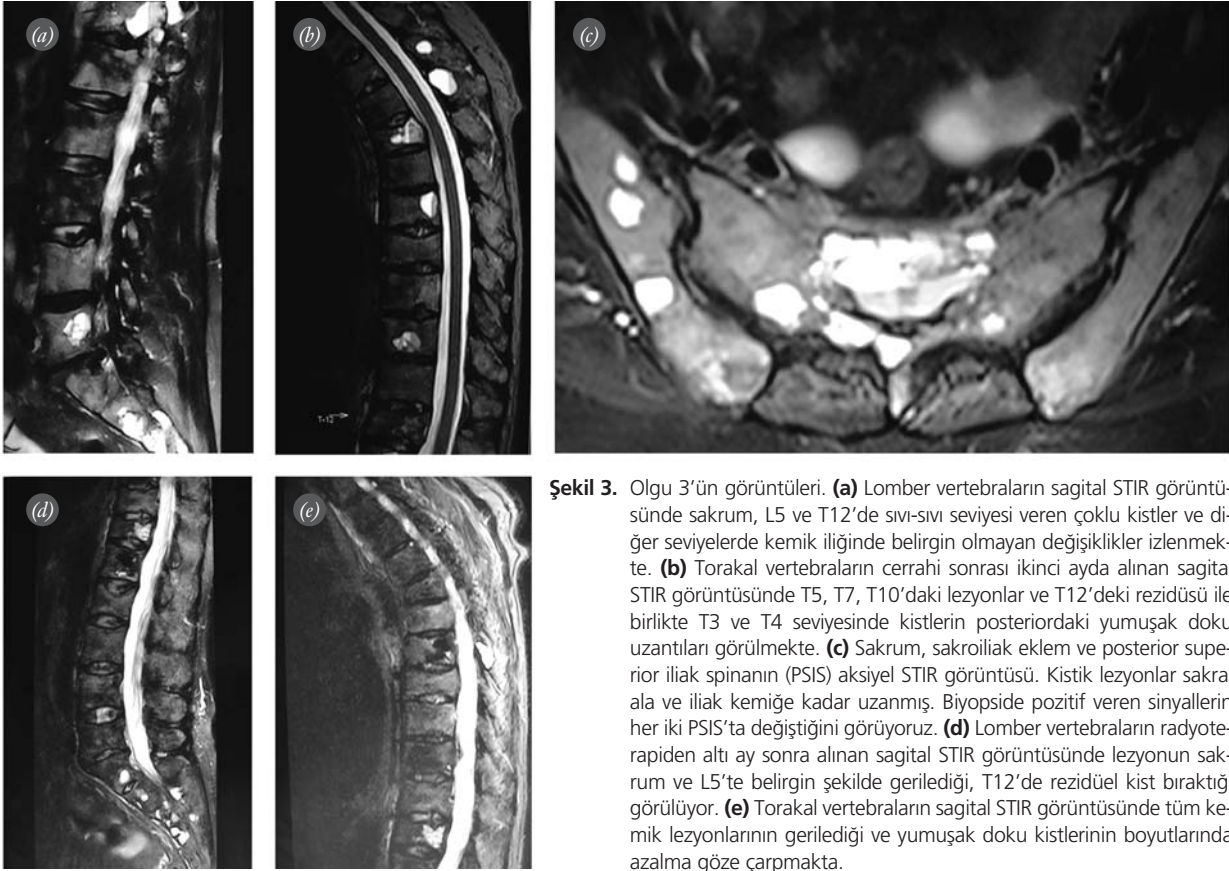
İkinci olgumuz, Kasım 2009'da birkaç aydır ilerleyen sırt ağrısı şikayeti ile gelen 67 yaşında bir bayan idi. Hasta 10 yıl önce mide kanseri tanısı almış ve düzenli onkolojik takibi yapılan, o zamana kadar rekürrens ve metastaz oluşmamış bir hasta idi. Standart ön-arka röntgenografide L3 vertebra sağ pedikülü destrüktif bir lezyonu düşündürülecek şekilde litik görünümde idi. Yan grafi ise, üst, alt ve ön kortikal yapıların çoğunlukla korunduğu spesifik olmayan bulgular içeriyordu. Bilgisayarlı tomografi incelemesinde AKK benzeri, kabuğu kalsifiye, sağ posterior ark destrüksiyonu olan Lodwick 1B litik lezyon görüldü. Manyetik rezonans görüntüleme ise L3 vertebra korpusunda sektör 7'den 3'e kadar uzanan, A-D arası tabakaları tutan (WBB sınıflaması) ve tipik sıvı-sıvı seviyesi veren, dural kese ve köklere basan kitle saptandı (Şekil 2). Bilgisayarlı tomografi eşliğinde yapılan biyopsi sonrası tanı, AKK benzeri alanlar içeren mide kanseri metastazı idi. Torasik BT taramasında, drenaj yapılmasını gerektiren pleval efüzyonlu çoklu metastazlar görüldü. Kemik taramasında da, benzer şekilde, birçok odak saptandı. Tedavi, lezyonun selektif arteriyel embolizasyonu sonrası cerrahi küretaj ve stabilizasyon idi. Anjiyografi esnasında lezyonun sağ üçüncü ve dördüncü lomber arterlerden dal aldığı görüldü. Cerrahiden altı ay sonra hasta asemptomatik idi, nörolojik defekt yoktu (Frankel skoru E) ve hasta hayat standardından memnundu. Hasta halen medikal onkolojik tedavisine devam etmektedir.

Olgu 3

Üçüncü olgumuz, Mart 2010'da daha önce hiçbir tümör öyküsü olmayan ve son 6 aydır sırt ağrısı şikayeti olan 53 yaşında bir bayandı. Hastanın MR görüntülemesinde sakrum, L5 ve T12'de çoklu, sıvı-sıvı seviyesi veren lezyonlar mevcuttu ve T12'de kompresyon kırığı ile uyumlu görünüm izlendi (Şekil 3a). Göğüs ve abdominal BT ile kemik taramaları negatifti. İlk değerlendirmeler sonucu hasta, omurgada çok seviyeli AKK lezyonu ve



Şekil 2. Olgu 2'deki lezyonun T1 ağırlıklı aksiyel MR görüntüsünde çoklu sıvı-sıvı seviyeleri görülmekte.



Şekil 3. Olgu 3'ün görüntüleri. **(a)** Lomber vertebraların sagittal STIR görüntüsünde sakrum, L5 ve T12'de sıvı-sıvı seviyesi veren çoklu kistler ve diğer seviyelerde kemik iliğinde belirgin olmayan değişiklikler izlenmektedir. **(b)** Torakal vertebraların cerrahi sonrası ikinci ayda alınan sagittal STIR görüntüsünde T5, T7, T10'daki lezyonlar ve T12'deki rezidüsü ile birlikte T3 ve T4 seviyesinde kistlerin posteriordaki yumuşak doku uzantıları görülmekte. **(c)** Sakrum, sakroiliak eklem ve posterior superior iliak spinanın (PSIS) aksiyel STIR görüntüsü. Kistik lezyonlar sakral ala ve iliak kemiğe kadar uzanmış. Biyopside pozitif veren sinyallerin her iki PSIS'ta değiştiğini görüyoruz. **(d)** Lomber vertebraların radyoterapi sonrası altı ay sonra alınan sagittal STIR görüntüsünde lezyonun sakrum ve L5'te belirgin şekilde gerilediği, T12'de rezidüel kist bıraktığı görülmüyor. **(e)** Torakal vertebraların sagittal STIR görüntüsünde tüm kemik lezyonlarının gerilediği ve yumuşak doku kistlerinin boyutlarında azalma göze çarpmakta.

kompresyon kırığı tanısı aldı ve ağrının kompresyon kırığından kaynaklandığı düşünüldü. T12 vertebraşına vertebroplasti ve T12 ile sakrumdan floroskopi eşliğinde biyopsi uygulandı. Patolojik değerlendirme spesifik olmayan granülasyon dokusu ile uyumlu idi. Geriye dönük değerlendirildiğinde, bu biyopsi örneklerinin çevre kemik dokusundan değil, kist içi ve kist duvarından alındığı düşünülmektedir. Hasta cerrahi işlemin hemen sonrası nispeten daha iyi iken, iki ay sonra artmış sırt ağrısı ile tekrar başvurdu. Çekilen MR görüntüsünde, L5 ve sakrumdaki lezyonların büyüdüğü, T3 ve T4 seviyesinde posterior elemanlarda tutulum ve T7, T9, L1, L4 ve bilateral arka iliak kanatta yeni lezyonlar gözlenirken, hepsinde sıvı-sıvı seviyesi veren görünüm mevcuttu (Şekil 3b ve c). Hastaya, bunun üzerine, tekrar evrelemek amacı ile PET scan uygulandı ve aksiyel iskelette ve bilateral iliak kanatta SUV maksimum değeri 3.05 ila 4 olan ve tiroid sağ lobda SUV maksimum değeri 8.0 olan yaygın ve artmış *up-take* kaydedildi. Hasta çok ağrılı olduğu için sakrum, L5, L4, L1, T11, T9 ve T5'e tekrar bir seri vertebroplasti yapıldı. Aynı seansta sağ iliak kanattan, L1, L4 ve T9'dan biyopsi alındı. İliak kanat ve L4 perikistik dokudan alınan örnekler orijin olarak mideyi düşündüren, yüzük hücreli, müsinoz adenokarsinom ile uyumlu idi. Yapılan endoskopik değerlendirmenin sadece atrofik gastrit

ile uyumlu olması ve mide kaynaklı primer odak düşüncesini desteklememesi sonucu hastaya tedavi planlaması mide kanseri düşünülerek yapıldı. Hastanın torasik ve lomber omurlarına ve sakruma palyatif radyoterapi uygulandı ve hastanın ağrıları belirgin şekilde azaldı. Hastaya 4 ay boyunca kemoterapi uygulandı. Hastanın sekizinci aydaki MR görüntülemesinde, radyoterapi sonrası birçok lezyonun gerilediği gözlendi (Şekil 3d ve e).

Tartışma

Birçok yazar AKK başka bir hastalıkla ilişkili olarak ortaya çıktığında, bunu ilk lezyonun sekonder değişikliği olarak değerlendirmektedir. Bu bakış açısı, daha önce nispeten sakin olan bir lezyonun bazen ani ekspansiyonunun klinik ve radyografik olarak gözlemlenmesi temelinde açıklanmaktadır. Bir diğer alternatif bakış açısı ise, anevrizmal kist elemanlarının lezyonun doğal parçalarından birisi ve en başından beri mevcut olduğudur.^[1] Olgularımız AKK'nin bazı kemik lezyonları ile ilişkili olarak oluşabileceğini göstermektedir ki; dev hücreli tümör, kondroblastoma, osteoblastoma, kondromiksoid fibroma ve fibröz displazi gibi selim lezyonlar ve osteosarkomalar gibi habis lezyonlar bunlar arasında yer alır.

Birçok klinisyen AKK'yi neoplazi olarak değerlendirilmekte ve karakteristik boşlukları 'hemodinamik bozukluk' veya 'arteriovenöz fistül' olarak nitelendirmektedir.^[9] Yazımızda sunulan olguların ışığında, bu varsayım büyük olasılıkla doğrudur ve AKK benzeri lezyonlar kemikte yerleşmiş ve tümenden artmış vaskülariteli neoplazilerde ortaya çıkabilirler. Bununla birlikte, tüm olgulardaki lezyonların aksiyel iskelette sınırlı kalmasının açıklaması hala bilinmemektedir.

Sunulan üç hastanın ikisinde daha önce bir kanser öyküsü, diğer hastada ise 10 yıldır hastalığı düşündürülen hiçbir bulgu yoktu. AKK benzeri lezyonlar, sıklıkla, bilinen bir primer rahatsızlığın evrelemesi esnasında rastlanan 'insidental' bir lezyon tanısı aldığından, bu durum tanıda bir karışıklığa yol açmış ve bunun sonucunda da en azından bir hastada (Olgu 3) yayılmış hastalığın tanı ve tedavisi gecikmiştir. Bu nedenle, bu olgular, spinal kolonda ne kadar 'tipik' görünümlü lezyon olursa olsun, her lezyondan biyopsi alınması gereğini ortaya koymuştur. İlginçtir ki, 'tipik' olan lezyonlar olgularımızın ikisinde relatif olarak atipik lokalizasyonda ortaya çıkmıştır. Bir olgumuzda anterior kolonda yerleşen lezyon nadir olarak görülürken, diğerinde ise birçok seviyede saptanan lezyon şimdiye kadar hiç bildirilmemiştir. Bildiğimiz kadarıyla çalışmamız, sıvı-sıvı seviyesi veren ve omurgada metastatik lezyonlarla ilişkili ve AKK'yi andıran kistik lezyonların bildirildiği ilk çalışmadır.

Sonuç olarak, sıvı-sıvı seviyesi veren AKK benzeri kistik lezyon bulgularımız aksiyel iskeletin metastatik

karsinomu ile ilişkili olabilir. Hızlı ilerleyen semptomları olan ve atipik yerleşimli lezyonlarda hastanın dikkatli bir şekilde evrenmesi ve lezyondan sağlıklı örnek alınması sağlanmalıdır.

Çıkar Örtüşmesi: Çıkar örtüşmesi bulunmadığı belirtilmiştir.

Kaynaklar

1. Martinez V, Sissons HA. Aneurysmal bone cyst. A review of 123 cases including primary lesions and those secondary to other bone pathology. *Cancer* 1988;61:2291-304.
2. Jaffe HL. Aneurysmal bone cyst. *Bull Hosp Joint Dis* 1950; 11:3-13.
3. Jaffe HL. Discussion following a paper by W.F. Donaldson Jr. Aneurysmal bone cyst. *J Bone Joint Surg* 1962;44A:40.
4. Kransdorf MJ, Sweet DE. Aneurysmal bone cyst: concept, controversy, clinical presentation, and imaging. *AJR Am J Roentgenol* 1995;164:573-80.
5. Balci P, Obuz F, Göre O, Yılmaz E, Demirpolat L, Aktug T, et al. Aneurysmal bone cyst secondary to infantile cartilaginous hamartoma of rib. *Pediatr Radiol* 1997;27:767-9.
6. Boriani S, De Iure F, Campanacci L, Gasbarrini A, Bandiera S, Biagini R, et al. Aneurysmal bone cyst of the mobile spine: report on 41 cases. *Spine* 2001;26:27-35.
7. Beltran J, Simon DC, Levy M, Herman L, Weis L, Mueller CF. Aneurysmal bone cysts: MR imaging at 1.5 T. *Radiology* 1986;158:689-90.
8. Boriani S, Weinstein JN, Biagini R. Primary bone tumors of the spine. Terminology and surgical staging. *Spine (Phila Pa 1976)* 1997;22: 1036-44.
9. Cottalorda J, Bourelle S. Modern concepts of primary aneurysmal bone cyst. *Arch Orthop Trauma Surg* 2007;127: 105-14.