

İNTRALİGAMENTER LOKALİZASYONLU BİR KİST HİDATİK OLGUSU

A Case Of Hydatid Cyst with Intraligamentary Localisation

Nilsen YILDIRIM ERDOĞAN¹, Nevra DURSUN², Melin ÖZGÜN GEÇER³

ÖZET

Kist hidatik, etkeni ekinokokkus granularis, multilokularis ve vagali olan zoonotik bir hastalıktır. Türkiye'nin de içinde olduğu Orta ve Doğu Avrupa, Güney Amerika, Avustralya, Yeni Zelanda gibi bölgelerde endemik olarak görülür. En sık karaciğer ve akciğeri tutar. Farklı lokalizasyonlarda tek ya da çoklu organ ve doku tutulumları olabilir. Değişken bir klinik seyri vardır ve birçok farklı hastalık semptomu ile ortaya çıkabilir. Kadın genital sisteminin kist hidatik ile izole tutulumu oldukça nadirdir.

Bu yazıda 'sol overde kitle' ön tanısıyla opere edilen ve tanısına frozen ile ulaşılan, 'uterus broad ligament lokalizasyonlu bir pelvik kist hidatik' olgusu sunulmaktadır.

Anahtar Kelimeler: *Endemik hastalık, Pelvik hidatik kist, Broad ligament.*

ABSTRACT

Hydatid cyst is a zoonotic disease caused by echinococcus granularis, multilocularis and vagali. It is seen endemically in the regions of South America, Australia, New Zealand, Central and Eastern Europe including Turkey.

It is mostly seen in the liver and lung. Single or multiple organ and tissue involvements can be observed in different locations. There is a variable clinical course with many different symptoms. Isolated involvement of the female genital tract with hydatid cyst is very rare.

We present a case of pelvic hydatid cyst located in the uterine broad ligament which was referred to with a left ovarian mass.

Key Words: *Endemic disease, Pelvic hydatid cyst, Broad ligament.*

¹Bozok Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji Ana Bilim Dalı

²Sağlık Bakanlığı İstanbul Eğitim ve Araştırma Hastanesi Patoloji Bölümü

³Sağlık Bakanlığı Dr. Lütfi Kırdar Eğitim ve Araştırma Hastanesi Patoloji Bölümü

Nilsen Y. ERDOĞAN, Yrd. Doç. Dr.
Nevra DURSUN, Uzm. Dr.
Melin Ö. GEÇER, Uzm. Dr.

İletişim:

Yrd. Doç. Dr. Nilsen Y. ERDOĞAN
Bozok Üniversitesi
Tıp Fakültesi
Patoloji Ana Bilim Dalı
66200 YOZGAT

Tel: 0354 2126102

e-mail:

nilsenim@gmail.com

GİRİŞ

Kist hidatik hayvancılığın yaygın olduğu bölgelerde daha çok olmak üzere tüm dünyada görülen, sıklıkla karaciğer ve akciğerde yerleşim gösteren, önemli ölçüde sağlık sorunu ve ekonomik kayıplara neden olan, ekinokokkus granülaris, multilokularis ve vagali'nin oluşturduğu zoonotik ve endemik bir hastalıktır (1). Ekinokokus hem hayvanlarda hem de insanlarda hastalık oluşturur, ancak insanlar bu etken için rastlantısal bir ara konaktır (2). Hastalığa larva ya da kistik dönemdeki ekinokoklar sebep olur. En sık karaciğeri (% 75) tutmakla birlikte akciğer (% 15), beyin, dalak, yumuşak dokular, kemik, meme, kalp ve spinal epidural mesafeyi de içeren birçok lokalizasyonda karşımıza çıkabilir (2,3,4). İspanya, Yunanistan, Türkiye, gibi Akdeniz ülkelerinde, Suriye, Yeni Zelanda, Avustralya, Uruguay, Arjantin ve Rusya gibi hayvancılıkla uğraşan ülkelerde endemik olmak üzere, tüm dünyada görülmektedir (4,5).

Hastalık, 20-40 yaş aralığında daha sık olmak üzere, her yaş ve cinste görülür. Etken genellikle çocukluk çağında alınır. Sosyo-ekonomik durumu bozuk, sağlık standartları düşük toplumlarda görülme oranı yüksektir. Ülkemizde de hayvancılığın yaygın olduğu iç ve Doğu Anadolu Bölgelerinde daha sık rastlanır (6,7). Türkiye'de her yıl ortalama 2000-2500 yeni kist hidatik vakası bildirilmektedir (6). Türkiye'de cerrahi te-

OLGU SUNUMU

Olgumuz 33 yaşında, kontrasepsiyon amaçlı rahim içi araç uygulaması için polikliniğe başvuran bir kadın hastadır. Öyküsünde 9 ay önce sezeryan operasyonu geçirmesi dışında özellik bulunmayan hastanın yapılan rutin jinekolojik muayenesinde sol adneksinde fiks kitle saptandı. Bunun üzerine yapılan pelvik ultrasonografide sol adneksde 7,8x7,3 cm ölçülerinde, septa kalınlığı 2,9 mm olan multikistik bir kitle izlendi. Yapılan rutin tetkiklerinde hemogram, kan biyokimyası ve tam idrar tahlili normal bulundu. Tümör belirteçleri CA125=15 U/ml (0-35), CA19.9=5U/ml (0-37), CEA=2 ng/ml (0-5), alfafetoprotein=0,50 ng/ml (0-25) idi. Çekilen postero-anterior akciğer grafisinde özel-

daviye ihtiyaç duyan vaka oranı 100.000 kişide 0,8-2 arasında değişir (8). Kist hidatik, izole veya birden çok organ tutulumu yapabildiğinden, birçok süreci taklit eden klinik tablolara neden olur (9,10). Organların malign hastalıkları ile kist hidatik arasındaki benzer klinik özellikler de dikkat çekicidir. Hastalık yine de vakaların en az üçte birinde tamamen asemptomatik seyir gösterebilir (9,11).

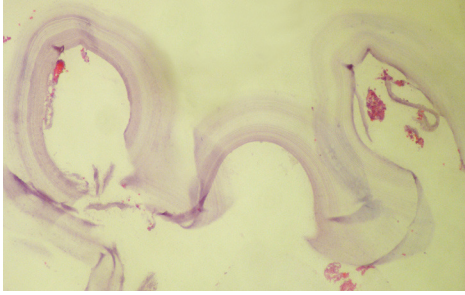
Genel laboratuvar tetkikleri spesifik olmadığından tanı immünolojik yöntemlere ve radyolojik görüntüleme yöntemlerine dayanır (9,11). Radyolojik görüntüleme yöntemi olarak ultrason en çok kullanılan non-invaziv test olup kistlerin tanı ve evrelendirilmesinde kullanılır (12,13). Bununla birlikte bilgisayarlı tomografi kistin büyüklüğü ve konumu hakkında daha iyi bilgi sağlar (14). Kist hidatiğin tuttuğu organlara bağlı olarak genel laboratuvar testleri değişkenlik gösterebilir. Örneğin karaciğer tutulumu olan olguların % 60 kadarında alkalen fosfataz yüksekliği saptanır. Tutulum bölgesinden bağımsız olarak da olguların % 33'ünde eozinofili, yaklaşık % 50'sinde de 1: 64 veya üzerinde indirekt hemaglutinasyon titresini saptanır (11). Kist hidatik için temel tedavi cerrahi eksizyon ve 800 mg/gün albendazol ile medikal tedaviyi de içeren kombinasyonudur (9,15)

lik görülmedi. Olgu spesifik tanı konulamaması üzerine, 'sol adneksial kitle' ön tanısı ile tanısız laparotomi operasyonuna alındı.

Operasyonda, her iki over ve tubanın doğal, uterusun da normal büyüklükte olduğu görüldü. Ancak, solda, uterus broad ligament yerleşimli, üreterin trasesini değiştirmiş, 12-13 cm çapında, kistik kıvamlı, fiks kitle izlendi. Ligamentin yaprakları açılarak kiste ulaşıldığında, etraf dokulardan tam ayrılmayan, cidarı sıyrılan, ancak rüptüre olan kist, parçalı halde kısmen çıkarılarak frozen inceleme için gönderildi.

Kistin daha derin pelvik dokularda devamlılığı olduğundan ve paravaginal çukura doğru derin bir şekilde uzandığından, bu bölgedeki damar-sinir yapılarının zarar görmemesi için, cerrahi eksizyon genişletilemeden sonlandırıldı.

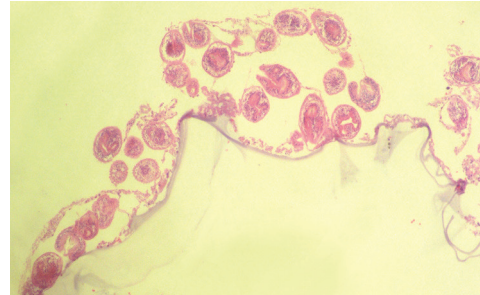
Materyalin makroskopik incelemesinde, en büyüğü açık halde ve 13x12 cm ölçülerinde olan, 0,1 cm cidar kalınlığında, kaygan yüzeyle, kaya suyu niteliğinde renksiz sıvı içeren, gri-beyaz renkli, çok sayıda kistik doku parçaları izlendi. Bu parçaların yanında ayrıca, yer yer çevre dokuları da içeren, fibrotik çeperli, iç yüzeyi düzgün kistik doku parçaları da vardı. Mikroskopik olarak, eozinofilik lamellöz kütüküler membran,



Resim 1: Hidatik kistin lamellöz yapıdaki germinatif tabakası (H&E x 100).

germinatif tabaka, perikistik fibröz kapsül ve tipik skoleksler görüldü. Kistin multikistik yapıda olması ve makroskopik özellikleri yanında mikroskopik bulguların da desteklemesi ile olguda 'kist hidatik' tanısına ulaşıldı (Resim 1-2).

Hastanın postoperatif taramalarında ekinokokal İHA (immün hemaglutinasyon) kuvvetli pozitif (1:2516) olarak bulundu. Yine postoperatif yapılan abdominopelvik tomografi tetkikinde kist hidatik için başka bir odak saptanmadı. Hastaya 6 ay boyunca 800 mg/gün Albendazol tedavisi uygulandı. Hasta 1 yıldır takipte olup, kist hidatik açısından serolojik ve klinik nüks izlenmedi.



Resim 2: Tipik skoleks yapıları, kız kistleri (H&E x 100).

TARTIŞMA

Ekinokokus granülaris, multilokularis ve vagali insanlarda 'kist hidatik' hastalığına sebep olur. Ülkemiz kist hidatik hastalığı açısından endemik bir bölge olup Türkiye'de kist hidatik görülme sıklığı 1/2000 olarak bildirilmektedir (16). Kist hidatiğin primer olarak nadir lokalizasyonlarda görülme oranı % 5-% 30'dur (17).

İnsanlar köpeklerle direkt temas ya da onların dışkıının kontamine ettiği sebzeleyle ekinokok yumurtalarını alır. Alınan yumurtaların midede açılması ile larva dönemine geçen ekinokoklar insanlarda hastalık oluşturur (3). Intestinal mukoza, portal ven ve lenfatiklerle karaciğere oradan da sinüzoidler yoluyla kalp ve akciğerlere ulaşabilir hatta genel dolaşıma geçip tüm vücut doku ve yapılarını tutabilirler (3,5). Bunun yanında karaciğer ya da akciğerde odak olmaksızın diğer dokuları da tutabilirler (4,5).

Kist hidatik yerleşim ve tutulum bölgesine bağlı olarak, tanı karışıklığına yol açabilen değişken klinik bulgular verebilir (18). Klinik bulguların yanıltıcı olması nedeni ile de preoperatif tanı bazen zor olabilir (19). Genel laboratuvar testleri, spesifik organ tutulumları olmadığı sürece, tek başlarına tanıya ulaşmada yardımcı değildir. Ultrasonografi en yararlı non-invaziv tanı aracı olup %90 spesifiteye ve % 98 oranında sensitiviteye sahiptir (13).

Primer pelvik kist hidatik, Douglas kesesi peritonunun hemen altındaki bağ dokusuna yerleşir (20). Buradan uterus, overler, tubalar, mesane ve rektuma yayılır. Over ve fallop tüplerinin tutulumu olan vakaların hemen hepsinde, öncelikle broad ligamanının tutulumu mevcuttur (21).

Pelvik lokalizasyonlu kist hidatik, tüm hidatozların % 0,9'unu, olgumuzdaki gibi opere edilen adneksial kitlelerin de % 1,8'ini oluştururlar (19). 532 olguluk bir başka çalışmadaki 12 pelvik kist hidatik olgusunun sadece 2 tanesinde ligament tutulumu saptanmış ve bu seride uterin ligament tutulum insidansı % 0,37 olarak bildirilmiştir (12).

Önceden hidatoz olduğu bilinen vakalarda kist hidatik tanısına ulaşmak kolay olurken, olguların büyük bir bölümünde, hastalık hikayesi de olmadığından, kist hidatik tanısına ancak 'lokal malign lezyon' ön tanısı ile yapılan operasyonlar sonucunda ulaşılır (22,23,24).

Nadir lokalizasyonu ve non-spesifik laboratuvar bulguları nedeniyle, olgumuzda da kist hidatikten çok neoplastik bir olay düşünülmüş ve sonunda kitlenin eksizeyonu ve makroskopik görüntüsü ve yapılan frozen tetkiki sonucu 'kist hidatik' tanısına ulaşılabilmektedir.

Temel tedavi, her vakaya göre ayarlanan, kistin lokalizasyon, volüm ve dağılımını temel alan cerrahi eksizyondur (25). Ancak, kist hidatiğin pelvigenital tutulumunun cerrahi girişiminde çok önemli iki güçlük vardır. Birincisi olgumuzda da olduğu gibi kistin kolayca rüptüre olabilmesi, ikincisi ise over ve tubanın da tutulduğu durumlarda yapılması zorunlu salpingooferektomiler sonrası gelişen infertilitedir (18,26). Olgumuzda over ve tuba etkilenmemiş olduğundan yalnızca kistik kitle eksize edildi. Ancak kitle broad ligamentinin yaprakları arasından derin pelvik dokulara yayılım gösterdiği için sınırlı cerrahi eksizyon uygulandı.

Nüksün önlenmesi için tüm kist hidatik vakalarında postoperatif dönemde medikal tedavi mutlaka eklenmelidir (23,25). Lokalizasyonu nedeniyle total eksizyon yapılamayan olgumuza cerrahi eksizyona ek olarak, sistemik medikal tedavi de uygulandı.

Sınırlı cerrahinin uygulandığı bu gibi olgulardaki rekürrens riski nedeniyle postoperatif klinik ve serolojik takipler oldukça önemli olup, mutlaka yapılmalıdır (18,26).

Operasyon öncesinde kist hidatik hikayesi ve şüphesi olmayan ve tanının ancak histopatolojik inceleme sonucunda konduğu bu gibi vakalarda, başka organ ve sistemlerde kistlerin olup olmadığı da ayrıntılı olarak araştırılmalıdır. Olgumuza yapılan ultrasonografi ve bilgisayarlı tomografi taramalarının sonucunda, farklı bir lokalizasyonda kist hidatik için tutulum tespit edilmedi. Böylelikle vakanın da 'broad ligament lokalizasyonlu izole pelvik kist hidatik' olduğu sonucuna ulaşıldı.

Sonuç olarak, endemik bölgelerde ve sosyoekonomik durumu kötü hastalarda, pelvigenital kitle ve lokal tümör ön tanılarında, önceden kist hidatik hikayesi olsun ya da olmasın kist hidatik de mutlaka ön tanıları içine alınmalı ve buna yönelik ayrıntılı incelemeler yapılmalıdır.

KAYNAKLAR

1. Basset D, Girou C, Nozais IP, et al. Neotropical echinococcosis in Suriname: Echinococcus Oligatrus in the orbit and echinococcus vogeli in the abdomen. *Am J Trop Med HYG* 1998; 59: 787-790.
2. Masroor I, Azeemuddin M, Khan S, Barakzai A. Hydatid disease of the breast. *Singapore Med J*. 2010 ;51(4):72-5.
3. Barwick KW, Rosai J. Ed. Acherman's Surgical Pathology, Volume 1. 8 TH ed. St. Louis, Missouri: Mosby, 1996: 897-898.
4. Bavek N, Inci s, Tahta K, et al. Primary multiple spinal extradural hydatid cyst of the literature: case report and review. *Paraplegia* 1992;30: 517-519.
5. Hepgül G, Tihan D, Kocael P, Doğan Y, Oztürk T, Cihan A. Case report: Primary splenic hydatidosis. *Türkiye Parazitoloj Derg* 2010;34(3):184-186.
6. Altıntaş N. Past to present: Echinococcosis in Turkey. *Acta Trop*. 2003;85(2):105-12.
7. Altıntaş N. Cystic and alveolar echinococcosis in Turkey. *Ann Trop Med Parasitol* 1998;92(6):637-4.
8. Merdivenci A, Aydınoglu K. Hydatidosis (hydatid disease), vol. 2972. Istanbul University, Cerrahpasa School of Medicine Publications, İstanbul, 1982.
9. Bülbüller N, İlhan YS, Kirkil C, Yeniçerioglu A, Ayten R, Cetinkaya Z. The results of surgical treatment for hepatic hydatid cysts in an endemic area. *Türk J Gastroenterol* 2006;17(4):273-8.
10. Gantz MN, Brown RB, Berk SL, Esposito AL, Glecmen RA. Ekinokokal kist (hidatik hastalık). In: Ünal s, Leblebicioğlu H; ed. İnfeksiyon hastalıklarında klinik problemler el kitabı. 4th ed. Ankara: Güneş Kitapevi, 2001:80.
11. Bickers WM. Hydatid disease of the female pelvis. *Am J Obstet Gynecol* 1970;107:477-83.
12. Caratozollo M, Scardella L, Grossi G, et al. Diagnostic approach of abdominal hydatidosis by ultrasonography. *Arch Hydatid* 1991;30:531-4.
13. Gharbi HA, Hassine W, Brauner MW, et al. Ultrasound examination of hydatid liver. *Radiology* 1981;139:459-63.
14. Pedroza I, Saiz A, Arrozola J, et al. Hydatid disease: radiologic and pathologic features and complications. *Radiographics* 2000;20:795-817.
15. Çağlayan K, Celik A, Koç A, Kutluk AC, Altinli E, Celik AS, Köksal N. Unusual locations of hydatid disease: diagnostic and surgical management of a case series. *Surg Infect (Larchmt)* 2010;11(4):349-53.
16. Aytaç A, Yurdakul Y, İkizler C. 1997. Pulmonary hydatid disease: report of 100 patients. *Ann Thorac Surg*, 23: 145-151.
17. Versaci A, Scuderi G, Rosato A, Angiò LG, Oliva G, Sfuncia G, Saladino E, Macrì A. Rare localizations of echinococcosis: personal experience. *ANZ J Surg* 2005;75(11):986-91.
18. Gamoudi A, Ben RK, Farhat K, Khattech R, Hechiche M, Rahal K. Ovarian hydatid cyst. 7 cases. *J Gynecol Obstet Biol Reprod (Paris)* 1995; 24(2): 144-148.
19. Baba A, Chaieb A, Khairil T, Keskes J. Epidemiological profile of pelvic hydatosis. 15 cases. *Gynecol Obstet Biol Reprod (Paris)* 1991; 20(5): 657-660.
20. Roychowdhury A, Bandopadhyay A, Bhattacharya P, Mitra RB. An unusual case of primary intrapelvic hydatid cyst. *Indian J Pathol Microbiol*. 2010;53(3):588-9.
21. Emamy H, Asadian A. Unusual presentation of hydatid disease. *Am J Surg* 1976;132:403-5.
22. von Sinner WN, Nyman R, Linjawi T, Ali AM. Fine needle aspiration biopsy of hydatid cysts. *Acta Radiol* 1995;36:168-72.

23. Gabsi Y, Brahem E, Djermoud R, Khouja H, Merieh S, Ben Amor MS. Pelvic hydatid echinococcosis in women in the maternity ward at the Habib Thameur University Hospital. Apropos of 5 cases (1978-1982). J Gynecol Obstet Biol Reprod (Paris) 1983;12(7): 751-754.

24. Laghzaoui Boukaidi M, Bouhya S, Soummani A, Hermas S, Bennan O, Sefrioui O, Aderdour M. Pelvic hydatid cyst: apropos of 8 cases. Gynecol Obstet Fertil 2001;29(5):354-357.

25. Tampakoudis P, Assimakopoulos E, Zafrakas M, Tzevelekis P, Kostopoulou E, Bontis J. Pelvic echinococcus mimicking multicystic ovary. Ultrasound Obstet Gynecol 2003;22(2): 196-198.

26. Terek MC, Ayan C, Ulukuş M, Zekiođlu O, Ozkinay E, Erhan Y. Primary pelvic hydatid cyst. Arch Gynecol Obstet 2000;264(2):93-96.