

Spinal Kist Hidatik: Bir Olgu Sunumu

Hydatid Cyst of the Spine: A Case Report

Korhan Barış BAYRAM*, Sevtap AVCI*, Hikmet KOÇYİĞİT*, Fazıl GELAL**, Alev GÜRGAN*
İzmir Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi *2. Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Kliniği, **Radyoloji Kliniği

Özet

Spinal kist hidatik (SKH) seyrek görülmektedir ve tüm kist hidatik vakaları içinde sıklığı yaklaşık %1 olarak bildirilmiştir. Etkilediği bölgeye göre spinal korda ve/veya sinir köklerine bası sonucu farklı nörolojik bulgularla seyredebilmektedir. Sol kalçadan topuğa yayılan ağrı, uyuşma, idrar kaçırma ve defekasyonda güçlük yakınması ile başvuran 30 yaşındaki bayan olguda sakral yerleşimli multiple hidatik kist tespit edildi. SKH'li olgularda kistin yüksek rüptür riski nedeniyle cerrahi başarı oranları düşük ve rekürrens siktir. Bu nedenle de son dönemde medikal tedaviler tercih edilmektedir. Albendazol tedavisiyle rekürrensleri azaltıp hastalığı kontrol altına almak mümkündür. Fiziyatri pratiğinde nadir karşılaşılmamasına rağmen endemik ülkelerde spinal kord bası sendromunun ayırıcı tanısında, spinal kist hidatik hastalığı mutlaka düşünülmelidir. *Türk Fiz Tıp Rehab Derg 2005;51(4):146-149*

Anahtar Kelimeler: Ekinokok, poliradikülopati, nörojenik mesane, albendazol

Summary

Spinal hydatid cyst (SHC) is rare and its frequency in all hydatid cysts has been reported to be approximately 1%. It may present with various neurological findings as a consequence of spinal cord and/or radicular nerve root compression depending on the area it occupies. Multiple hydatid cysts were found located in the sacral region in a woman at the age of 30 who presented with the complaints of pain radiating from the left hip to the heel, numbness, urinary incontinence and difficulty in defecation. Success rate of surgery in the patients with SHC is low due to the high risk of rupture of the cyst. Therefore, medical treatment is preferred currently. It is possible to decrease the recurrences and control the disease activity with albendazole treatment. Although it is rarely encountered in physiatry practice, spinal hydatid disease should be considered in the differential diagnosis of spinal cord compression syndrome in endemic countries. *Turk J Phys Med Rehab 2005;51(4):146-149*

Key Words: Echinococcosis, polyradiculopathy, neurogenic bladder, albendazole

Giriş

Spinal kist hidatik (SKH), Ekinokokkus granulosus larvasının primer bulaşması sonucu gelişir. Portovertebral venöz şant sonucu sıklıkla vertabranın korpus cismi primer olarak tutulurken, lamina ve pedikül gibi diğer kanselloz kemikler de etkilenir. Bununla birlikte disk aralığı korunur. Hastalık Kuzey Amerika ve Batı Avrupa'da seyrek olarak izlenmekle birlikte Akdeniz, Doğu Avrupa, Asya, Afrika ve Güney Amerika ülkelerinde yaygındır (1,2). Ülkemizde 1980-1987 yılları arasındaki insidansı 100.000'de 14 olarak bildirilmiştir (3). SKH seyrek görülmektedir ve tüm kist hidatik olguları içinde sıklığı yaklaşık %1 olarak bildirilmiştir (4,5). Spinal tutulumun dağılımına baktığımızda sırasıyla en sık torakal bölge (%50) ve sonra lomber (%20), sakral (%20) ve servikal (%10) bölge tutulumu izlenmektedir (4). Hastalığın başlangıcında görü-

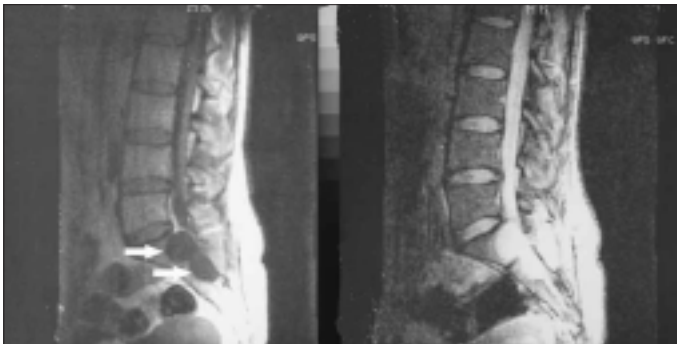
lebilen belirti ve bulgular, ağrı ve bazen de deformitedir. Etkilediği bölgeye göre spinal korda ve/veya sinir köklerine bası sonucu farklı nörolojik bulgularla seyredebilmektedir (4,6). Kistin yüksek rüptür riski nedeniyle SKH'li olgularda cerrahi başarı düşüktür ve rekürrens siktir. Bu nedenle son dönemde medikal tedavilerle kombine edilmesinin prognozu olumlu yönde etkilediği düşünülmektedir (1,6,7). Bu makalede rekürrens gösteren sakral yerleşimli bir spinal kist hidatik olgusu sunulmuş ve konuyla ilgili literatür gözden geçirilmiştir.

Olgu Sunumu

30 yaşında bayan olgu, sol kalçadan topuğa yayılan ağrı, uyuşma, idrar kaçırma ve defekasyonda güçlük yakınmaları ile Nisan 2004'de polikliniğimize başvurdu. Öyküsünde, 1986 yılında

akciğerde kist hidatik tanısıyla iki kez opere edilmişti. Bu operasyonlara ait bilgilere ulaşamadığı gibi yine o dönemde önerilen medikal tedaviler konusunda yeterli bilgi alınamadı. Operasyon sonrası 2001 yılında sağ gluteal bölgeden kalçaya yayılan ağrı, idrar yapamama ve defekasyonda güçlük yakınmaları nedeniyle başvurduğu Nöroşirürji Kliniği tarafından bu kez sakral spinal kist hidatik tanısıyla opere edilmiş. Operasyon öncesi değerlendirmede, süvari yaması tarzında anestezi bulgusu dışında ek bir nörolojik kayıp tespit edilmemiş ve mevcut bu bulgusu da operasyon sonrası düzelmemiş. Postoperatif önerilen albendazol preparatını hasta kısa süreli kullanmış, ancak devam etmeyerek kendisi kesmiş. Operasyon sonrası olgunun ağrı yakınması geçmiş, fakat idrar kaçırma ve defekasyonda güçlük yakınmaları devam etmiş. Bu yakınmalarına, bir ay öncesinde de sol kalçadan topuğa yayılan ağrı ve uyuşma eklenmiş. Ağrısının içnelenme ve batma tarzında olduğunu tanımlıyordu. Mevcut yakınmalarının gün içinde uzun süre sabit pozisyonda kalmakla arttığını ve zaman zaman da ağrıları nedeniyle geceleri uyandığını belirtiyordu. Sabah tutukluğu tanımlamıyordu.

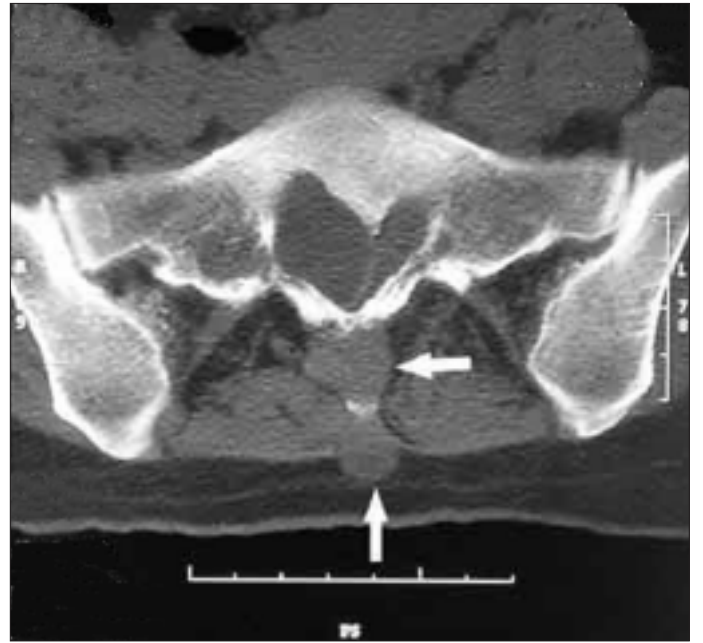
Klinik değerlendirmede; olgunun T.A. 100/50 mm Hg, nabız 78/dk ve ateş 36,5°C idi. Hareket sistemi dışındaki sistemlerin fizik muayenesi normal sınırlarda değerlendirildi. Hareket sistemi muayenesinde, yürüyüş paterni antalgik olarak değerlendirilen olgunun sol alt ekstremitede ağrıları nedeniyle basma fazı kısalmış olan olarak saptandı. Sakral bölgede palpasyonla yaygın hassasiyeti mevcuttu. Bel hareketlerinde öne fleksiyon ağrılı ve kısıtlıydı. El-yer mesafesi 35 cm olarak ölçüldü. Sinir germe testleri olumsuz olan hastanın yapılan nörolojik muayenesinde, aşil refleksi solda alınmazken, sağda azalmış olarak değerlendirildi. S3 ve S4 dermatomlarını içine alacak şekilde süvari yaması tarzında anestezisi olan olgunun yüzeysel ve derin anal duyu, anal refleks ve anal tonusu olumsuzdu. Laboratuvar incelemelerinde, Hb: 11,6 gr/dl, Htc: %34,7, Fe: 29,9 µg/dl, Total Fe bağlama kapasitesi: 480 µg/dl ve Ferritin: 5 ng/ml değerleri ile demir eksikliği anemisi tespit edildi. Kist hidatik açısından yapılan serolojik testlerde, ELISA: 1/640, indirekt hemaglutinasyon testi (IHA): 1/5000 ve indirekt flüresan ağılutinasyon testi (IFAT): 1/320 ile pozitif ve bu sonuçlar klinik tanıyı desteklemekteydi. Akciğer ve karaciğer tutulumu açısından radyolojik incelemeler yapıldı. PA akciğer grafisi ve toraks bilgisayarlı tomografisi (BT)'nde, sol akciğer alt lobda geçirilmiş operasyona bağlı sekel değişiklikler izlendi. Batın içi organlara ait ultrasonografik incelemelerde bir patoloji saptanmadı. Operasyon öncesine ait lomber manyetik rezonans görüntüleme (MRG) (Resim 1) ve BT (Resim 2) kesitlerinde; S1-S2 düzeyinde sakral spinal kanalı dolduran, spinal reses ve foramenleri genişleten ve korpus içine ilerleyen multiloküle kistik kitle ve hemen arkasında yer alan spinöz çıkıntı yerleşimli, paravertebral cilt altı dokuya ilerleyen daha yoğun içerikli kistik lezyon mevcuttu. Operasyon sonrası çekilen lomber MRG (Resim 3)



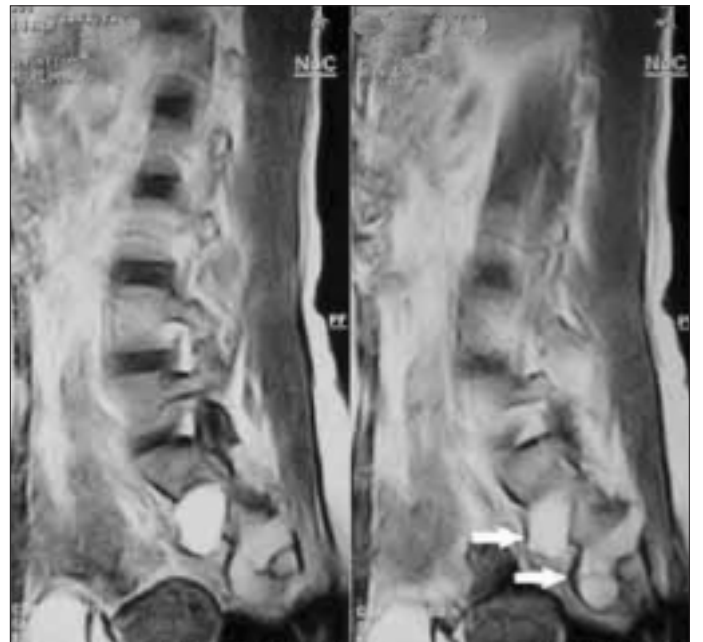
Resim 1: Operasyon öncesi sagittal planda lomber MRG kesitleri (SE T1 ve GRE T2).

kesitlerinde, sakral spinal kanal ve foramenler düzeyinde rezidü ve/veya rekürren kistik lezyonlarla birlikte S1-S2 ve S2-S3 pelvik boşluğa protrüzyon izlendi. Mevcut radyolojik, laboratuvar ve nörolojik bulguları bir arada değerlendirildiğinde, olgu sakral yerleşimli spinal kist hidatik tanısı aldı ve 2001 yılındaki cerrahi girişim öncesi gelişen tablonun nüksü olarak değerlendirildi.

Nöroşirürji Kliniği tarafından yeni bir cerrahi girişim düşünülmeyen olguya albendazol 800 mg/gün dozunda başlandı. Pelvik tutulumun kontrolü amacıyla istenilen genel cerrahi konsültasyonunda radyolojik ve klinik izlem önerildi. İdrar inkontinansı nedeniyle yapılan sistometrik incelemede; ilk idrar hissi 194 ml'de duyulurken, bu esnadaki detrüör basıncı 56,7 cm H₂O, abdominal basınç 4,8 cm H₂O olarak tespit edildi. İlk işeme isteği ise 227



Resim 2: Operasyon öncesi lomber BT kesiti.



Resim 3: Operasyon sonrası sagittal planda lomber MRG kesitleri (SE T2W).

ml'de oluşurken, detrüör basıncı 65,4 cm H₂O ve abdominal basıncı 6,8 cm H₂O'ya yükseldi. Maksimum sistometrik kapasitesi 230 ml olan olgunun kompliyansı 3,4 ml/cm H₂O olarak hesaplandı. Bu sonuçlar düşük kompliyanslı ve yüksek basınçlı mesane ile uyumluydu. Bunun üzerine hastaya temiz aralıklı kateterizasyonla birlikte oksibutin hidroklorid 15 mg/gün dozunda başlandı. Barsak rehabilitasyonu açısından tuvalet eğitimi ve diyet düzenlemesi yapıldı. Demir eksikliği anemisi için oral olarak ferro-glisin sülfat 568 mg/gün dozunda verildi. Ağrı yakınmaları için de amitriptilin 10 mg/gün dozunda başlandı ve 15 seans TENS uygulandı. Uygulanan tedavilerle olgunun idrar inkontinansı ve ağrı yakınmalarında iyileşmeler sağlanmasına karşın defekasyon güçlüğünde değişiklik olmadı.

Tartışma

Ekinokoklar, parazitlerin helmint sınıfı içinde yer alan sestodların bir alt grubudur. İnsanları etkileyen türler *E. granulosus* ve *E. multilocularis*'tir (8). Kist hidatiğin kemik tutulumu %0,5-2 arasındadır ve bu oran içinde vertebral tutulum %44 olarak bildirilmiştir (9). SKH sıklıkla erkeklerde ve 21-40 yaş arası grupta görülmektedir (10). 1981 yılında Braithwaite ve Lees (11) tarafından yapılan sınıflamayla beş grupta ele alınmıştır; (a) primer intramedüller, (b) primer intradural ekstrapedüller, (c) primer ekstradural intraspinal, (d) vertebral, (e) spinal omurgaya yayılan paravertebral (kostal, mediastinal, retroperitoneal bölge ve erekör spina kasları) tutulum. Kist hidatiğe bağlı spinal lezyonlar genellikle vertebra korpusunun portovenöz şant yoluyla primer tutulumuna bağlıdır. Ekinokok embriyo vertebra korpuslarının intratrabeküler aralığı boyunca multiloküler büyürek tümör benzeri infiltrasyon ve hasara yol açar. Bunu pedikül ve lamina invazyonu izler. Zamanla kemik korteksi de aşarak çevre yumuşak dokulara ve komşu iskelet yapılarına yayılır (5,12). SKH vakaları çoğunlukla multiple seyirlidir. Bizim olgumuzda da sakral bölgede ekstradural intraspinal yerleşimli, vertebral ve paravertebral alanlara yayılan multiple tutulum izlenmekteydi. SKH'nin sakral lokalizasyonu açısından yapılan literatür incelemesinde bu bölgede tutulumun nadir olduğunu belirten ve kordoma yanlış tanısı alan sakrokoksigeal yerleşimli kist hidatik olgusuna rastladık. Burada sakrokoksigeal bölgeyi tutan oluşumlar içinde en sık görülen tümörün kordoma olduğu ve sıklıkla lobüle, jelatinöz yapısı nedeniyle BT veya MRG görüntüsünün SKH ile karışabildiği belirtilmiştir (13). Ayırıcı tanıda, ayrıca tüberküloz, piyogen enfeksiyonlar, fibröz displazi, encondroma, metastatik maligniteler, multipl miyelom ve dev hücreli tümör de akla getirilebilir (14).

SKH'de ağrıya eşlik eden klinik bulgular olarak, etkilenen bölgeye göre spinal korda ve/veya sinir köklerine bası sonucu farklı derecelerde duyu kusuru ve kas gücü kaybı ile nörojenik mesane ve bağırsak disfonksiyonları sıklıkla gözlenmektedir (4,15). Bizim olgumuzda da sakral bölge tutulumuna bağlı nörojenik mesane ve bağırsak disfonksiyonu kliniği ön plandaydı. Bununla birlikte, yapılan sistometrik incelemede arefleks mesaneyle uyumlu bulgular beklenirken, düşük kompliyanslı ve yüksek basınçlı mesane bulgularıyla karşılaşıldı. Konuyla ilgili literatürlerde, sakral spinal kord lezyonlarında başlangıçta yüksek veya normal kompliyanslı detrüör arefleksisi sık görülen bir durum iken zamanla azalmış kompliyans gelişebileceği belirtilmiştir. Nedeni tam aydınlatılamamakla birlikte bu konuyla ilgili birkaç farklı görüş sunulmuştur. Sakral spinal kord seviyesi veya daha distalindeki lezyonlarda oluşan parasempatik desantralizasyonun kompleks yanıtı üzerinde durulmuştur. Buna göre detrüör adrenerjik reseptör yanıtında değişiklik olduğu ve düz kaslarda gevşemeyi sağlayan β adrenerjik yanıtın yerini düz kaslarda kontraksiyona neden olan α adrenerjik yanıtın al-

dığı bildirilmiştir (16,17). Farklı bir görüş olarak da, Neal ve arkadaşları (18) uzun dönemde detrüör desantralizasyonunun mesanede çok sayıda kolinerjik sinir oluşumu ile sonuçlandığını belirtmişlerdir. Hackler ve arkadaşları (19) yapmış oldukları bir çalışmada, 44'ü alt motor nöron lezyonlu (AMNL) ve 210'ü üst motor nöron lezyonlu (ÜMNL) olmak üzere toplam 254 spinal kord yaralanmalı hastada mesane kompliyansını incelemişler; AMNL 44 hastanın tümünde (%100) bulbokavernöz refleks negatif ve eksternal anal sfinkter denerve iken, 22 hastada (%50) düşük kompliyanslı mesane tespit etmişler ve ÜMNL 210 hastanın ise sadece %10'unda düşük kompliyanslı mesane rapor etmişlerdir. Ayrıca azalmış kompliyansın hidronefroz ve/veya reflü ile ilişkisine değinerek bu hasta grubu için sıkı takip önermişlerdir. Bu çalışmada ortaya konulduğu üzere, AMNL hastalarda yüksek oranda düşük kompliyanslı mesane ve buna bağlı komplikasyonlar gelişebilmektedir. Bu nedenle nörojenik mesane açısından tedaviyi planlamadan önce lezyon seviyesinden bağımsız olarak sistometrik inceleme yapılması uygun olacaktır.

SKH'li olgularda cerrahi sonrası nükslerin sıklığı nedeniyle cerrahi tedavide başarı düşüktür. Bu nedenle son dönemde medikal tedavilerle kombine edilmesinin prognozu olumlu etkilediği düşünülmektedir. Kemik tutulumunda, sıklıkla emilimi ve etkinliği mebendazola oranla daha iyi olan albendazol tercih edilmektedir. Albendazol (bölünmüş iki doz halinde günlük 800 mg) tedavisine 1 ila 6 ay arasında (genellikle 3 ay) devam edilir. Ancak albendazol ve mebendazolün her ikisinin de teratojen ve embriyotoksik oldukları, ayrıca hematolojik yan etkilere ve karaciğer enzimlerinde değişikliklere neden olabilecekleri akılda tutulmalıdır (6,20). Yine kemik tutulumunda, albendazole birlikte veya tek başına prazikuantel tedavisinin de etkili olduğu bildirilmiştir (10). Albendazol tedavisinin etkinliğinin değerlendirilmesinde; olguların 1 yıl sonra BT veya MRG ile kontrolü önerilir. Kistin kaybolması, küçülmesi veya kist duvarının kalsifiye olması medikal tedavinin etkinliğini gösterir (20). Bunlara ek olarak tanısız amaçlı kullanılmakta olan serolojik testler, tedavinin izleminde de kullanılır. Tedavi başarılı ise bu testler 6-18 ayda negatifleşir (21). Bununla birlikte SKH tedavisinde şu an gelinen nokta tatmin edici değildir. 1853'den beri çok iyi bilinen parazitin yaşam siklusunu kırma konusunda alınabilecek önlemler üzerinde durulmalı ve uygulamaya geçirilmelidir.

Sonuç olarak hastalığa bağlı komplikasyonları en aza indirmek için preoperatif erken tanı önemli olduğundan, halen ülkemiz için ciddi bir sağlık problemi olmaya devam ettiğini düşündüğümüz bu hastalığın fiziyatri pratiğinde nadir de olsa karşımıza çıkabileceğinin akılda tutulması gerektiği kanısındayız.

Kaynaklar

1. Islekel S, Ersahin Y, Zileli M, Oktar N, Oner K, Ovul I, et al. Spinal hydatid disease. *Spinal Cord* 1998;36:166-70.
2. Tuzun M, Hekimoglu B. Hydatid disease of the CNS: Imaging features. *AJR* 1998;171:1497-500.
3. Uçan ES. Virüs, mantar parazit enfeksiyonları. *Temel İç Hastalıkları*. İliçin G, editör. Güneş Kitabevi; Ankara 1996: s. 403-622.
4. Charles RW, Govender S, Naidoo KS. Echinococcal infection of the spine with neural involvement. *Spine* 1988;13:47-9.
5. Iplikcioglu AC, Kökes F, Bayar A, Doganay S, Buharali Z. Spinal invasion of pulmonary hydatidosis: Computed tomographic demonstration. *Neurosurgery* 1991;29:467-8.
6. Hamdan TA, Al-Kaisy MA. Dumbbell hydatid cyst of the spine. *Spine* 2000;25 (10):1296-9.
7. Göçer Al, Tuna M, İldan F, Bağdatoğlu H, Hacıyakupoğlu S. Cervical intradural extramedullary hydatid cyst. *Turk J Neurosurg* 1994;4:169-71.
8. Savas R, Calli C, Alper H, Yunten N, Ustun EE, Ertugrul G, et al. Spinal cord compression due to costal Echinococcus multilocularis. *Comput Med Imaging Graph* 1999;23:85-8.

9. Merkle EM, Schulte M, Vogel J, Tomczak R, Rieber A, Kern P, et al. Musculoskeletal involvement in cystic echinococcosis: Report of eight cases and review of the literature. *AJR* 1997;168:1531-4.
10. Lam KS, Faraj A, Mulholland RC, Finch RG. Medical decompression of vertebral hydatidosis. *Spine* 1997;22(17):2050-5.
11. Braithwaite PA, Lees RF. Vertebral hydatid disease: Radiological assessment. *Radiology* 1981;140:763-6.
12. Turtas S, Viale S, Pau A. Long-term results of surgery for hydatid disease of the spine. *Surg Neurol* 1980;13:468-70.
13. Yegen C, Ozer AF, Aktan AO, Yalin R. Sacrococcygeal hydatid cyst: Another entity in the differential diagnosis of sacrococcygeal chordoma. Case report. *Paraplegia* 1993;31:479-81.
14. Sapkas GS, Stathakopoulos DP, Babis GC, Tsarouchas JK. Hydatid disease of bones and joints. *Acta Orthop Scand* 1998;69:89-94.
15. Karray S, Zliti M, Fowles JV, Zouari O, Slimane N, Kassab MT, et al. Vertebral hydatidosis and paraplegia. *J Bone Joint Surg (Br)* 1990;72:74-87.
16. Webster GD, Kreder KJ. The neurourologic evaluation. In: Walsh PC, editör. *Campbell's Urology*. 7th edition. Philadelphia: WB Saunders Company; 1998. p. 927-52.
17. Sundin T, Dahlström A, Norlen L, Svedmyr N. The sympathetic innervation and adrenoceptor function of the human lower urinary tract in the normal state and after parasympathetic denervation. *Invest Urol* 1977;14:322-8.
18. Neal DE, Bogue PR, Williams RE. Histological appearances of the nerves of the bladder in patients with denervation of the bladder after excision of the rectum. *Brit J Urol* 1982;54:658-66.
19. Hackler RH, Hall KH, Zampieri TA. Bladder hypocompliance in the spinal cord injury population. *J Urol* 1989;141(6):1390-3.
20. Baykaner MK, Dogulu F, Oztürk G, Edali N, Tali T. A viable residual spinal hydatid cyst cured with albendazole: Case report. *J Neurosurg (Spine 1)* 2000;93:142-4.
21. Zileli M, Sucu K. Omurga ve omurilik enfeksiyonları. In: Zileli M, Özer F, editör. *Omurilik ve Omurga Cerrahisi*. İzmir: Saray Medikal Yayıncılık; 1997. s. 701-22.