

Akciğer hamartomu: 15 olguluk bir analiz

Hamartoma of the lung: an analysis of 15 cases

Halil Tözüm,¹ Ahmet Üçvet,¹ Soner Gürsoy,¹ Cemil Kul,¹ Serdar Şirzai,¹ Oktay Başok,¹ Zekiye Aydoğdu²

Dr. Suat Seren Göğüs Hastalıkları ve Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi,

¹Göğüs Cerrahisi Kliniği, ²Patoloji Kliniği, İzmir

Amaç: Bu çalışmada cerrahi rezeksiyon uyguladığımız pulmoner hamartom olguları geriye dönük olarak değerlendirildi.

Çalışma planı: Ocak 2000 ile Aralık 2006 tarihleri arasında kliniğimizde 15 pulmoner hamartom olgusuna (11 erkek, 4 kadın; ort. yaş 53.5 yıl; dağılım 42-68 yıl) cerrahi rezeksiyon yapıldı. Çalışmamızda bu olgular; klinik, histopatolojik ve radyolojik özellikleri, uygulanan cerrahi işlemler ve tedavi sonuçları açısından geriye dönük olarak değerlendirildi.

Bulgular: Çalışmaya dahil edilen pulmoner hamartomlu 15 hastanın altısı (%40) asemptomatik iken, geriye kalanlarda göğüs ağrısı, öksürük, nefes darlığı, tekrarlayan pulmoner enfeksiyonlar ya da hemoptizi yakınmaları vardı. Altı hastada (%40) kalsifikasyon gözlemlendi. Olguların 11'inde lezyonun kitle çapı 3 cm'den küçük bulunurken (%73.3); lezyonlar olguların dokuzunda akciğer periferinde, dördünde endobronşiyal yerleşimli idi. Uygulanan cerrahi yöntemlere bakıldığında ise; olguların ikisine bronkotomi, ikisine enükleasyon, yedisine wedge rezeksiyon, birine segmentektomi, birine lobektomi ve ikisine da pnömonektomi yapıldığı görüldü. Ameliyat sırasında ölüm olmadı, ameliyat sonrası dönemde ise birkaç minör komplikasyon görüldü. Ameliyat sonrası dönemde ölüm ve ortalama 12 aylık takip süresince (4-55 ay) yineleme görülmedi.

Sonuç: Pulmoner hamartomlar sıklıkla soliter pulmoner nodüller şeklinde ortaya çıkarlar. Kesin tanı ve tedavi, minimal morbiditeye sahip cerrahi rezeksiyonla başarılı bir şekilde yapılabilir.

Anahtar sözcükler: Kanser; hamartom; neoplazma; akciğer hamartomu; soliter pulmoner nodül; tümör.

Background: We retrospectively aimed to evaluate the clinicopathological features of pulmonary hamartomas for which surgical resections were performed.

Methods: From January 2000 to December 2006, 15 patients (11 males, 4 females; mean age 53.5 years; range 42 to 68 years) with pulmonary hamartomas underwent surgical resection in our department. In this study, these cases were evaluated retrospectively with respect to clinical, histopathological and radiological features, surgical methods and the results of treatment.

Results: Fifteen cases with pulmonary hamartomas were included in the study. Six of these 15 patients were asymptomatic (40%); in the remainder cases chest pain, cough, shortness of breath, recurrent pulmonary infections or hemoptysis were present. There was calcification in six patients (40%). In 11 cases the mass was <3 cm in diameter (73.3%) and in nine cases it was located in the superficial edge of the lung, in four cases it had endobronchial location. The surgical procedures which were performed were enucleation in two cases, bronchotomy in two, wedge resection in seven, segmentectomy in one, lobectomy in one and pneumonectomy in two. No deaths occurred during operations and there were only minor postoperative complications. There was no postoperative death and no recurrent pulmonary hamartomas developed in the 12-month mean follow up period (4 to 55 months).

Conclusion: Pulmonary hamartomas usually present as solitary pulmonary nodules. Definite diagnosis and the treatment can be achieved by surgical resection with minimal morbidity.

Key words: Cancer; hamartoma; neoplasm; pulmonary hamartoma; solitary pulmonary nodules; tumor.

Hamartomlar, sinonim ismiyle mezenkimomalar, epitelyal ve mezenkimal elementlerin anormal karışımı ve gelişmesiyle ortaya çıkan organize olmamış malformasyonlardır.^[1] Bu kompozisyonda sıklıkla, kıkırdak yapılar, yağ doku, düz kaslar ve respiratuvar epitel hücreleri bulunur.^[2] Kesin etyolojik neden bilinmemekle birlikte; doğuştan malformasyon, normal yapıların hiperplazisi, kıkırdakla ilgili benign tümör, inflamasyona yanıt gibi birçok teori ileri sürülmüştür.^[1] Vücudun çok farklı bölgelerinde görülebileceği gibi, en sık olarak akciğerde ortaya çıkarlar. Yine akciğerin en sık rastlanan benign tümörleri de hamartomlardır. Tüm soliter pulmoner nodüllerin %6'sını oluşturdukları bildirilmiştir.^[3] Genel olarak çok büyümeyen ve endobronşiyal yerleşimde bulunmadıkça mortalite ve morbiditeye neden olmazlar. Ancak asıl sorun, sigara içen bir hastada atipik bir nodül olarak ortaya çıktıklarında, birçok primer ya da metastatik pulmoner maligniteden ayırıcı tanısının yapılması gerekliliğidir.

HASTALAR VE YÖNTEMLER

Ocak 2000-Aralık 2006 tarihleri arasında kliniğimizde cerrahi rezeksiyon yapılan 15 pulmoner hamartom olgusu (11 erkek 4 kadın; ort. yaş 53.5 yıl; dağılım 42-68 yıl) çalışmaya dahil edildi. Çalışmamızda bu olgular, klinik, histopatolojik ve radyolojik özellikleri, uygulanan cerrahi işlemler, cerrahi sonrası komplikasyonlar ve tedavi sonuçları açısından geriye dönük olarak değerlendirildi.

BULGULAR

Çalışmaya alınan 15 hastanın altısı asemptomatik (%40) iken, diğer 11'i göğüs ağrısı, öksürük, nefes darlığı, tekrarlayan pulmoner enfeksiyonlar ya da hemoptizi yakınması ile başvurdu. Bu olguların 11'inde de kitle çapı 3 cm'den küçük bulundu (%73.3). Lezyonlar dokuz olguda akciğer periferinde, dört olguda endobronşiyal yerleşimli, iki olguda ise santral yerleşimli idi. Hamartomların karakteristik kalsifikasyonları sadece altı olguda (%40) radyolojik olarak izlendi. Ameliyat öncesi transtorasik veya transbronşiyal ince iğne aspirasyon biyopsileri (İİAB) olguların 12'sine uygulandı. Sadece üç olguda (%25) hamartom tanısı kondu. Hiçbir olguda Carney's triadına rastlanmadı. Uygulanan cerrahi yöntemlere bakıldığında ise; iki olguya bronkotomi, iki olguya enükleasyon, yedi olguya wedge rezeksiyon, bir olguya segmentektomi, bir olguya lobektomi ve iki olguya da pnömonektomi yapıldığı görüldü. Ameliyat sırasında ölüm olmadı, ameliyat sonrası dönemde ise "uzamış hava kaçağı" gibi birkaç minör komplikasyon görüldü. Ameliyat sonrası dönemde ölüm ve 12 aylık (4-55 ay) takip süresince nüks görülmedi.

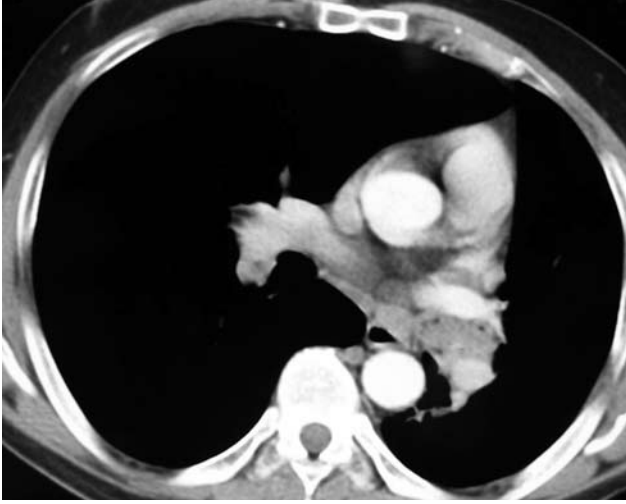
TARTIŞMA

Bu neoplazmlar, literatürde bildirildiği ve bizim olgularımızda da olduğu gibi genellikle 30-60 yaş arasında ve erkeklerde daha sık olarak görülürler.^[4]

Hamartomlar sıklıkla pulmoner parankimde soliter nodüller şeklinde belirirler (Şekil 1). Bu yerleşimlerinden dolayı, genellikle asemptomatikler ve çoğu zaman rutin akciğer taramalarında farkedilirler.^[5] Ancak endobronşiyal yerleşimde ya da santral (hiler) yerleşimde de görülebilirler (Şekil 2). Her ne kadar Gjevre ve ark.^[6] 215 olguluk geniş analizlerinde endobronşiyal hamartom (EHs) oranını %1.4 olarak bildirmişlerse de; David ve ark.^[7] gibi birçok araştırmacı EHs oranını %10-20 olarak bildirmişlerdir. Bizim çalışmamızda ise bu oran genel kabulün üstünde, %26.7 olarak bulundu. Bu oranın yüksekliğinin, cerrahi kliniği olmamız nedeniyle, daha çok semptomatik hastaların cerrahiye yönlendirilmesinden kaynaklandığını düşünmekteyiz. Yine nadiren soliter değil de diffüz formda da izlenebilirler. Minami ve ark.^[8] bir olgularında, endobronşiyal ağaçtan başlayarak pulmoner parenkime yayılan diffüz tutulumlu bir hamartoma rastladıklarını bildirmişlerdir. Bizim çalışmamızda da dört endobronşiyal olgudan pnömonektomi yapılan ikisinde (%13.3) diffüz tutulum izlendi (Şekil 3). Buradan hareketle diffüz tutulumun hiç de sanıldığı kadar nadir olmadığını düşünmekteyiz.



Şekil 1. İçinde küçük kalsifiye alanlar içeren periferik soliter nodül şeklinde ortaya çıkmış bir hamartom olgusu.



Şekil 2. Ardında “destroyed lung” meydana çıkarmış, diffüz tutulumlu bir endobronşiyal hamartom olgusu.

Çoğu zaman lezyonun çapı 3 cm’den küçüktür. Ancak 25 cm kadar çapa, 3.2 kg kadar ağırlığa ulaşan olgular literatürde bildirilmiştir.^[5] Zheng ve ark. nın^[2] analizlerinde; olguların %79’unda (n=19) tümör çapının 3 cm’den küçük, %70.8’inde de (n=17) lezyonların periferik yerleşimli olduğu bildirilmiştir. Kervancıoğlu ve ark.^[9] hamartomların büyük bir çoğunluğunun çaplarının 2.5 cm’den küçük bildirmişlerdir. Tümörün çapı anatomik yerleşimden bağımsız fakat hastanın yaşıyla ilişkilidir.^[4] Bizim olgularımızda da 11 lezyon 3 cm’den küçük (%73.3) bulundu. Ayrıca 3 cm’den büyük olarak izlenen dört lezyonun tamamının ortalama yaşın üstündeki hastalarda görülmüş olması tümör çapının yaşla ilişkili olduğu hipotezini desteklemektedir.

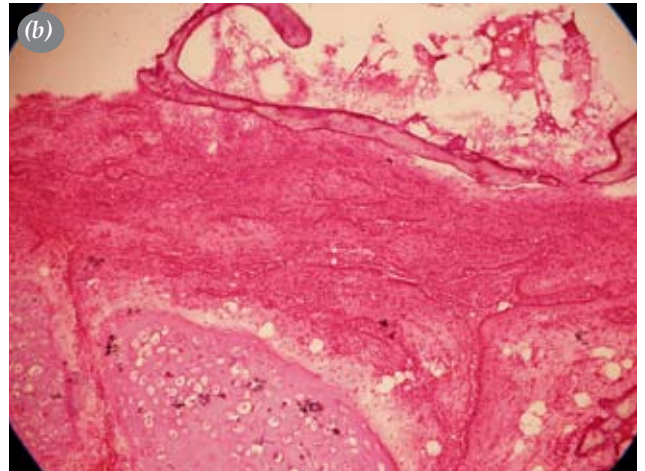
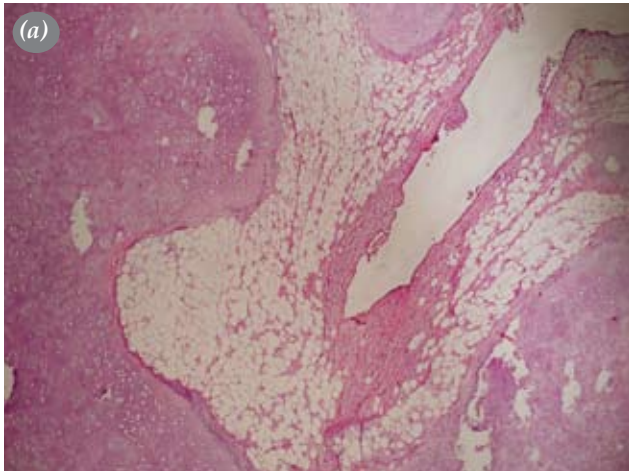
Tipik radyografik görünümleri düzgün sınırlı veya hafif lobüle kenarlı soliter nodüller şeklindedir.^[10] Kitlenin yağ içermesi tanısal kabul edilmekle birlikte



Şekil 3. Diffüz tutulum ve harap olmuş akciğer nedeni ile pnömonektomi yapılan bir olgunun makroskopik görüntüsü. Hamartomatöz yapıdaki lobüler görünüm dikkati çekmektedir.

olguların sadece %50’sinde izlenebilir (Şekil 4a).^[11] Yine tanı koydurucu kabul edilen bir başka karakteristik özellik “popcorn kalsifikasyon”lardır. Bunlara da olguların sadece %5-50’sinde rastlanır.^[11,12] Öte yandan Crouch ve ark.^[13] çalışmalarında popcorn kalsifikasyonlara hiç rastlamadıklarını ve bu kalsifikasyonların hamartomlar için karakteristik sayılamayacaklarını iddia etmişlerdir. Radyolojik özellikleri açısından olgularımızı değerlendirdiğimizde ise; olguların sadece altısında (%40) kalsifikasyon izlenirken, yine sadece dördünde (%26.7) yağ yoğunluğu tespit edildi. Biz bu tespitle, tek başlarına olmasa da, popcorn kalsifikasyonlarla yağ yoğunluğunun birlikteliğinde, bunun tanı koydurucu olabileceğini düşünmekteyiz.

Hansen ve ark.nın^[4] çalışmasında İİAB’nin tanı koydurma oranı %85 olarak bildirilmiştir. Ramirez-Chavez ve ark.^[14] ise 49 olguluk çalışmalarında



Şekil 4. (a) Endobronşiyal hamartom, kıkırdak ve geniş yağ dokusu alanları. (b) Bronşiyal hamartom, kıkırdak, epitelyal doku ve bağ doku alanları taşıyan yapı.

sadece bir hastada İİAB ile ameliyat öncesi tanı koyabilmişlerdir. Zheng ve ark.^[2] ise 24 olguluk çalışmalarında sadece altı olguya ameliyat öncesi tanı koyabilmişlerdir. Görüldüğü üzere, literatürde farklı yorumlar olmasına rağmen, genel olarak İİAB'nin tanı koydurma oranları, hamartomlar için çok düşüktür. Bizim olgularımızda ise bu oran %25 olarak bulundu.

Unutulmamalıdır ki, akciğer kanserlerinin %20-%30'unun ilk radyolojik bulgusu soliter bir nodüldür. Yine 50 yaş üstü soliter pulmoner nodüllerin %50'den fazlası karsinomdur. İşte tam da bu nedenle, büyük bir çoğunluğu soliter nodüller şeklinde ortaya çıkan hamartomların, karsinomlardan ayırıcı tanılarının yapılması zorunludur (Şekil 4b). Lezyona cerrahi dışı yöntemlerle kesin olarak "hamartom" tanısı konulabilmesi çoğu kez zordur ve cerrahi kaçınılmaz hale gelir. Ancak hamartomlar benign, yavaş büyüyen lezyonlardır ve ameliyat öncesi kesin tanı konulabildiğinde, cerrahiye gerek duyulmadan periyodik takiplerle izlenebilirler.^[14] Birçok yayında, tanısı önceden bilinen hamartomlar için cerrahi önerilmemektedir, ancak büyüklüğü takipler sırasında artan ya da semptomatik hale gelen lezyonlarda cerrahi önerilmektedir.^[15,16] Buna rağmen, torakotomi öncesi tanı konmamışsa, hem tanı hem de tedavi amacıyla kitlenin çıkarılması önerilmektedir.^[17]

Çalışmamızda olguların sadece üçüne ameliyat öncesi dönemde hamartom tanısı konulabildi, bunlardan ikisine endobronşiyal yerleşimli ve semptomatik olması, diğer birine de hemoptizi yakınması ile birlikte 6 cm çaplı bir lezyonu olması nedeniyle, zorunlu olarak cerrahi tedavi uygulandı. Tedavi asıl olarak, periferik tümörlerin enükleasyonunu ya da wedge rezeksiyonunu ve endobronşiyal lezyonların bronkoskopik olarak kaldırılmasını içerir.^[6] Görüldüğü gibi, tedavinin temel ilkesi, parankim koruyucu cerrahi uygulanmasıdır. Hansen ve ark.^[4] 89 olguluk çalışmalarında olguların 75'inde cerrahi tedavi uygulamışlar ve bunların da %6.7'si lobektomi, %5.3'ü pnömonektomi şeklinde yapılmıştır. Bu oran, Ribet ve ark.^[18] 65 olguluk çalışmalarında, %26.1 lobektomi ve %1.5 pnömonektomi şeklinde gerçekleşmiştir. Crouch ve ark.^[13] ise çalışmalarında hastaların %26.3'üne lobektomi yapmışlardır. Bizim çalışmamızda ise, olguların %6.7'sine lobektomi, %13.3'üne pnömonektomi yapıldı. Pnömonektomi uygulanan her iki olguda da lezyonların endobronşiyal oluşu dikkat çekicidir. Her iki olguda da bazal segmentlere kadar, hemen tüm ana bronş sisteminin lezyonla dolu olması ve zaman içinde akciğer parankiminin tamamen harap olması nedeni ile ideal olan bronkoskopik ya da parankim koruyucu cerrahileri uygulamak mümkün olmadı. Görüldüğü üzere, her ne

kadar parankim koruyucu cerrahi istense de, gerektiğinde büyük akciğer rezeksiyonları da yapılmaktadır. Özellikle büyük lezyonlarda ve ardında harap olmuş bir akciğer yaratması mümkün olan endobronşiyal lezyonlarda, geniş akciğer rezeksiyonları daha sık olarak gerekebilmektedir.

Sonuç olarak, tanısı kesin olarak konmuş hamartomlarda, cerrahi çoğu zaman gereksizdir. Ancak kesin tanı konarak akciğer karsinomundan ayırıcı tanısı yapılamamış olan ve/veya semptomatik olan lezyonlarda, kesin tanı ve tedavi amaçlı cerrahi kaçınılmazdır. Hatta lezyonun büyüklüğü ve yerleşimine göre, son derece geniş akciğer rezeksiyonlarına bile gerek duyulabilir.

KAYNAKLAR

1. Wolfgang D. Radiology review manual. 3rd ed. Baltimore: Lippincott Williams & Wilkins; 1996
2. Zheng RH, Chou DH, Shi MX. Hamartoma of the lung: an analysis of 24 cases. Zhonghua Jie He He Hu Xi Za Zhi 1994;17:86-7. [Abstract]
3. Thomas JW, Staerckel GA, Whitman GJ. Pulmonary hamartoma. AJR Am J Roentgenol 1999;172:1643.
4. Hansen CP, Holtveg H, Francis D, Rasch L, Bertelsen S. Pulmonary hamartoma. J Thorac Cardiovasc Surg 1992; 104:674-8.
5. Hutter J, Reich-Weinberger S, Hutarew G, Stein HJ. Giant pulmonary hamartoma-a rare presentation of a common tumor. Ann Thorac Surg 2006;82:e5-7.
6. Gjevre JA, Myers JL, Prakash UB. Pulmonary hamartomas. Mayo Clin Proc 1996;71:14-20.
7. David O, Beasley MB, Minardi AJ Jr, Malek F, Kovitz KL. Management of endobronchial hamartoma. J La State Med Soc 2003;155:110-2.
8. Minami Y, Iijima T, Yamamoto T, Morishita Y, Terashima H, Onizuka M, et al. Diffuse pulmonary hamartoma: a case report. Pathol Res Pract 2005;200:813-6.
9. Kervancıoğlu R, Bayram MM, Elbeyli L. Giant pulmonary hamartoma. AJR Am J Roentgenol 1997;168:573.
10. Acar M, Özateş M, Ekici F, Şimşek M. Akciğer hamartomu. Türk Tanısal ve Girişimsel Radyoloji Dergisi 2001;7:373-5.
11. Siegelman SS, Khouri NF, Scott WW Jr, Leo FP, Hamper UM, Fishman EK, et al. Pulmonary hamartoma: CT findings. Radiology 1986;160:313-7.
12. Ledor K, Fish B, Chaise L, Ledor S. CT diagnosis of pulmonary hamartomas. J Comput Tomogr 1981;5:343-4.
13. Crouch JD, Keagy BA, Starek PJ, Delany DJ, Wilcox BR. A clinical review of patients undergoing resection for pulmonary hamartoma. Am Surg 1988;54:297-9.
14. Ramirez-Chavez G, Celard P, Gamondes JP, Loire R, Pinet F, Cordier JF, et al. Pulmonary hamartoma. Apropos of 49 surgically treated cases. Sem Hop 1984;60:1181-4. [Abstract]
15. Nili M, Vidne BA, Avidor I, Paz R, Levy MJ. Multiple pulmonary hamartomas; a case report and review of the literature. Scand J Thorac Cardiovasc Surg 1979;13:157-60.

16. de Rooij PD, Meijer S, Calame J, Golding RP, van Mourik JC, Stam J. Solitary hamartoma of the lung: is thoracotomy still mandatory? *Neth J Surg* 1988;40:145-8.
17. Shields TW, Robinson PG. Benign tumors of the lung. In: Shields TW, LoCicero III J, Ponn RB, editors. *General thoracic surgery*. 5th ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2000. p. 1515-32.
18. Ribet M, Jaillard-Thery S, Nuttens MC. Pulmonary hamartoma and malignancy. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1994;107:611-4.