

Multifokal akciğer tutulumu ile bronkosentrik granülomatozis: Olgu sunumu

Bronchocentric granulomatosis with multifocal lung involvement: A case report

Ali Kılıçgün,¹ Bahar Kurt,² Murat Bölük,² Fahri Yılmaz³

Abant İzzet Baysal Üniversitesi Tıp Fakültesi, ¹Göğüs Cerrahisi Anabilim Dalı,

²Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, ³Patoloji Anabilim Dalı, Bolu, Türkiye

Bronkosentrik granülomatozis, klinik bulgular ile radyolojik görünüm arasında ilişkinin olmadığı nadir bir hastalıktır. Daha çok erişkinlerde görülür ve genellikle tesadüfen tanınır, ancak kesin tanı akciğer biyopsisi ile konur. Bronş ve bronşiyollerinde nekrotizan granülomatöz reaksiyon izlenir. Bu yazıda tesadüfen çekilen akciğer grafisindeki şüpheli görünüm üzerine ileri incelemeler yapılan 37 yaşında bir erkek hasta sunuldu. Bilgisayarlı akciğer tomografisinde (BT) çok sayıda periferik nodül izlendi. Solunum fonksiyon testlerinde orta derecede obstrüksiyon var idi ve fiberoptik bronkoscopide lezyon izlenmedi. Açık akciğer biyopsisinde orta lobdan nodül eksizyonu yapıldı ve sonuç bronkosentrik granülomatozis ile uyumlu bulundu. Bu olgu, nadiren görülmesi ve akciğerde multipl nodüllerin etyolojisinde araştırılması gereken bir durum olduğuna inanmamız nedeni ile sunuldu.

Anahtar sözcükler: *Aspergillus*; granülomatozis; açık akciğer biyopsisi.

Bronkosentrik granülomatozis 1973 yılında Liebow^[1] tarafından bronş ve bronşiyollerin destrüktif granülomatöz lezyonu olarak tanımlanmıştır. Bronkosentrik granülomatozis spesifik klinik, radyolojik ve immünolojik özellikleri olmayan tanısı morfolojik olarak biyopsi ya da rezeksiyon yapılmış akciğer dokusunun incelenmesi ile konulan bir hastalıktır. Bu hastalığın hava yolu hasarına verilen değişken yanıt formunda histopatolojik süreç olduğuna inanılmaktadır.^[2] Bronkosentrik granülomatozis, *aspergillus*'a yanıtta olduğu gibi, küçük kalibreli hava yollarında gelişen dairesel granülomatöz inflamasyon, normal çizgisel respiratuar epitel kaybı ve granüler bazofilik münin ve hücre debrisinin hava yolunu etkilemesiyle oluşur.^[3] Etkilenen hastaların 1/3'ünde

Bronchocentric granulomatosis is a rare disease which shows no correlation between the clinical findings and radiological imaging. It is seen often in adults and is generally diagnosed by accident; however, a definitive diagnosis can be made with a lung biopsy. A necrotizing granulomatous reaction of the bronchi and bronchioles is generally observed. In this article, we present a 37-year-old male who was admitted for a detailed examination after a suspicious image was discovered on the chest X-ray. Many peripheral nodules were observed on computed tomography (CT) of the lung. Respiratory function tests revealed a mild obstruction, and a fiberoptic bronchoscopy showed no lesion. A nodule excision from the middle lobe in open lung biopsy was performed, and the result was found to be consistent with bronchocentric granulomatosis. We present this case due to its rare nature and believe it is a condition which should be investigated in terms of the etiology of multiple nodules.

Key words: *Aspergillozis*; granülomatöz; açık akciğer biyopsisi.

doku eozinofilisi mevcut olup bronşial astma, periferik kanda eozinofiliye, biyopside mantar hiflerine, *aspergillus* oraganizmalarına ait pozitif balgam kültürlerine yatkınlık vardır. Bu hastalar alerjik bronkopulmoner *aspergillozis* histolojik komponentine sahip olabilirler. Radyolojik olarak nodüller veya kitle benzeri lezyonlar ve pnömonik konsolidasyonlar ile başvurabilirler.^[4]

OLGU SUNUMU

Otuz yedi yaşında erkek hasta herhangi bir yakınması olmaksızın akciğer grafisinde izlenen şüpheli görüntü nedeniyle kliniğimize yönlendirildi. Hastanın öz geçmişinden 25 paket-yıl sigara içme öyküsü olduğu öğrenildi. Yaklaşık bir yıl önce estetik bir ameliyat planlandığı



Available online at
www.tgkdc.dergisi.org
doi: 10.5606/tgkdc.dergisi.2012.128
QR (Quick Response) Code

Geliş tarihi: 11 Kasım 2009 Kabul tarihi: 21 Ocak 2010

Yazışma adresi: Dr. Ali Kılıçgün, Abant İzzet Baysal Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Cerrahisi Anabilim Dalı, 14280 Gölköy, Bolu, Türkiye.

Tel: 0505 - 258 15 03 e-posta: alikilicgun@mynet.com

sırada çekilen akciğer grafisindeki şüpheli görünüm üzerine göğüs hastalıkları kliniğince sarkoidoz, silikozis, malignite ve tüberküloz ön tanıları ile ileri incelemelerine başlandı. Rutin hemogram ve biyokimyasal incelemelerinde herhangi anormallik izlenmedi. Sedimantasyon normal sınırlarda idi. Bilgisayarlı akciğer tomografisinde sağ akciğerde daha belirgin olmak üzere ağırlıklı olarak periferik yerleşimli ve yer yer plevral yüzlere eşlik eden bir kısmında kalsifikasyon içeren yaygın milimetrik boyutlarda düzgün kontürlü nodüller izlendi (Şekil 1). Solunum fonksiyon testlerinde orta derecede obstrüksiyon (GOLD evre II KOAH) mevcuttu. Fiberoptik bronkoskopide endobronşiyal lezyon izlenmedi. Bronkoalveoler lavaj incelemesinde aside dirençli basil (ARB) negatif idi. Lavajın sitolojik bakışında malign hücre görülmedi. Sağ alt lobtan yapılan transbronşiyal biyopsi sonucunda mikroskopik bulguların bronşiolitis obliterans organize pnömoni (BOOP) lehine yorumlandı. Bu bulgular ışığında hastaya açık akciğer biyopsisi yapılmasına karar verildi. Sağ akciğer orta lobtan nodülleri içine alacak şekilde açık akciğer biyopsisi yapıldı. Ameliyat sonrası herhangi komplikasyon izlenmedi. Patolojik değerlendirme sonucu bronkosentrik granülomatozis ile uyumlu bulundu (Şekil 2). Biyopsi materyalinde mantar hiflerine ve aspergillus organizmalarına ait bulgulara rastlanmadı. Hastaya kortikosteroid tedavisine başlandı. Hastanın takibinde yapılan balgam kültürlerinde aspergillus hifleri görüldü. Tekrarlanan kültürlerde yine aspergillus izlendi. Bunun üzerine oral itrakanazol tedavisi başlandı. Hasta bir yıldır takip halindedir.

TARTIŞMA

Bronkosentrik granülomatozis 1973 yılında Liebow^[1] tarafından bronş ve bronşiyollerin destrüktif granü-

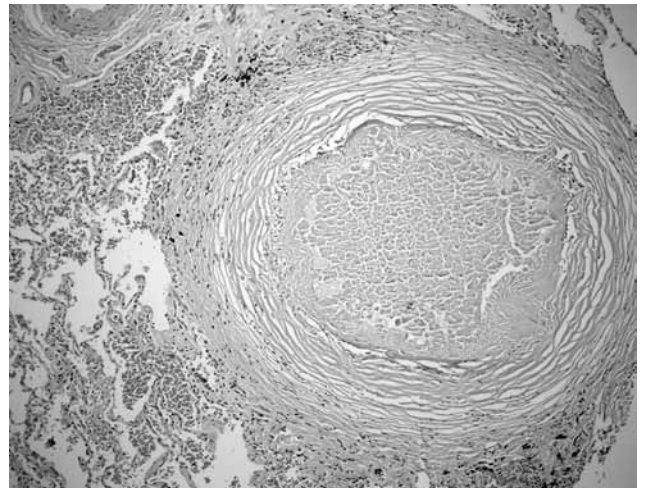
matöz lezyonu olarak tanımlanmıştır. Bronkosentrik granülomatozis spesifik klinik, radyolojik ve immüno-lojik özellikleri olmayan tanısı morfolojik olarak biyopsi ya da rezeksiyon yapılmış akciğer dokusunun incelenmesiyle konulan bir hastalıktır. Bu hastalığın hava yolu hasarına verilen değişken yanıt formunda histopatolojik süreç olduğuna inanılmaktadır.^[2]

Bronkosentrik granülomatozisin görülme sıklığı ve yaygınlığı bilinmemektedir. Sıklıkla klinik olarak astma varlığı veya yokluğu temelinde iki gruba ayrılır. Astma benzeri semptomlar, daha çok 20-40 yaş arası hastalarda, öksürük, nefes darlığı, plöritik göğüs ağrısının eşlik ettiği pulmoner semptomlar ile ortaya çıkar, astmatik olmayan grup ise daha çok 30-70 yaş arasında görülür; göğüs semptomları nadirdir, nonspesifik hastalık ve halsizlik hali daha yaygındır.^[1,5] Olgumuzda hiçbir semptom ve astım bulunmuyor idi ve estetik bir ameliyat planlanır iken çekilen akciğer grafisinde saptanan lezyonlar üzerine ileri araştırmaya gereksinim duyulmuş idi.

Bronkosentrik granülomatozisin radyolojik bulguları spesifik değildir. Buna rağmen baskın olarak nodüler veya kitle benzeri lezyon (%60) ve pnömonik konsolidasyon (%27) şeklinde karşımıza çıkar. Radyolojik bulgular sıklıkla tek taraflı (%73) ve akciğerin üst zonlarda (%60) görülmektedir. Bronkosentrik granülomatozisin bilgisayarlı tomografi bulgularını, fokal kitle veya lobar konsolidasyon alanları ile atelektazi görüntüleri oluşturmaktadır.^[4] Beş hastanın radyoloji bulgularının değerlendirildiği bir çalışmada; iki hastada kitle lezyon, bir hastada iki taraflı nodüller, bir hastada konsolidasyon, bir hastada ise konsolidasyon ve eşlik eden atelektazi saptanmıştır.^[6] Hastamızda iki taraflı düzgün sınırlı yaygın nodüller var idi.



Şekil 1. Sağ akciğer orta lob yerleşimli periferik nodül izlenmektedir.



Şekil 2. Bronşiyol içinde ortada nekrotik materyal, bunun etrafında histiyositler ve en dışta fibrozisle çevrili granülomatöz yapı (H-E x 100)

Bronkosentrik granülomatozis, az görülen, bronş ve bronşiyol epitelinde nekrotizan granümatöz infiltrasyon ile birlikte, akciğer parenkimini çevreleyen kronik inflamatuvar değişikliklerle karakterize bir hastalıktır. Etkilenen hastaların 1/3'ünde doku eozinofilisi mevcut olup astmaya, periferik eozinofiliye, biyopside mantar hiflerine, aspergillus organizmalarına ait pozitif balgam kültürlerine yakınlık vardır. Bu hastalar alerjik bronkopulmoner aspergillozis histolojik komponentine sahip olabilirler. Geriye kalan 2/3'lük hasta akciğer lezyonlarında eozinofili yerine nötrofilisi mevcuttur ve astması yoktur. Astmatik semptomları olmayan hastalarda bronkosentrik granülomatozisin alta yatan nedeni çoğunlukla belli değildir.^[4] Hastamızın tanısı akciğer biyopsi dokusunun patolojik incelenmesiyle konuldu ve bu dokunun incelenmesinde mantar hiflerine rastlanmadı. Takipte yapılan ve tekrarlanan balgam kültüründe aspergillus hiflerine rastlandı.

Beş hastayı içeren bir çalışmada iki hastada lobektomi, iki hastada açık akciğer biyopsisi, bir hastada transbronşiyal biyopsi dokularının incelenmesiyle tanı konulmuştur.^[6]

Bronkosentrik granülomatozis tanısı klinik, radyolojik, immünolojik olmayıp doku tanısı ile konulabilen bir hastalıktır. Nodüller bulunan ve sigara öyküsü olan hastada kanser olasılığını ekarte etmek için biyopsi yapıldı ve tanı morfolojik bulgularla konuldu. Nadir görülen bir morfolojik tanı olması nedeni ile ve patolojik biyopsi gerekliliği, iki taraflı akciğer nodülleri olan hastalarda göz önünde bulundurulmalıdır.

Çıkar çakışması beyanı

Yazarlar bu yazının hazırlanması ve yayınlanması aşamasında herhangi bir çıkar çakışması olmadığını beyan etmişlerdir.

Finansman

Yazarlar bu yazının araştırma ve yazarlık sürecinde herhangi bir finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

KAYNAKLAR

1. Liebow AA. The J. Burns Amberson lecture-pulmonary angitis and granulomatosis. *Am Rev Respir Dis* 1973;108:1-18.
2. Myers JL. Bronchocentric granulomatosis. Disease or diagnosis? *Chest* 1989;96:3-4.
3. Kradin RL, Mark EJ. The pathology of pulmonary disorders due to *Aspergillus* spp. *Arch Pathol Lab Med* 2008;132:606-14.
4. Jeong YJ, Kim KI, Seo IJ, Lee CH, Lee KN, Kim KN, et al. Eosinophilic lung diseases: a clinical, radiologic, and pathologic overview. *Radiographics* 2007;27:617-37.
5. Katzenstein AL, Liebow AA, Friedman PJ. Bronchocentric granulomatosis, mucoid impaction, and hypersensitivity reactions to fungi. *Am Rev Respir Dis* 1975;111:497-537.
6. Ward S, Heyneman LE, Flint JD, Leung AN, Kazerooni EA, Müller NL. Bronchocentric granulomatosis: computed tomographic findings in five patients. *Clin Radiol* 2000;55:296-300.