

## Akciğer Tüberkülozunun Eşlik Ettiği Tracheobronchopathia Osteochondroplastica Olgusu

Ali Nihat Annakkaya, Öner Balbay, Cahit Bilgin, Peri Arbak, İsmet Bulut  
Abant İzzet Baysal Üniversitesi Düzce Tıp Fakültesi, Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı

### Özet

Trakeobronkopati Osteokondroplastika (TO) büyük hava yollarını tutan nedeni bilinmeyen nadir ve selim bir bozukluktur. Trakea ve ana bronşlarda submukozal yerleşimli çok sayıda kemik ve kıkırdak dokusu içeren nodüllerle karakterizedir. Kırk yedi yaşında erkek hasta Mayıs 2004'de öksürük, ateş, göğüs ağrısı yakınmaları ve akciğer grafisinde bilateral üst zonlarda infiltrasyon nedeni ile hastaneye yatırıldı. Fizik muayenede alopesia areata dışında anormallik saptanmadı. Balgam muayenesinde aside rezistan basil ve malign hücre görülmedi. Toraks BT'de her iki akciğer üst loblarda dağınık yamalı infiltrasyonlar gözlemlendi. Bronkoskopide hemen kord vokallerden sonra başlayan ve posteriordeki membranöz kısım hariç tüm trakeayı tutan lümen içine uzanan çok sayıda 3-5 mm çaplı, soluk, beyaz nodüller görüldü. Bu nodüller yapı lateral duvarda sağ ana bronş içine doğru kısmen uzanım göstermekte idi. Bronş lavajı kültüründe tüberküloz basili üredi. Akciğer tüberkülozu tanısı konan olgu nadir görülen TO ile birliktelik göstermesi nedeni ile sunulmuştur.

Akciğer Arşivi: 2006; 7: 66-68

**Anahtar Kelimeler:** Trakeobronkopati osteokondroplastika, tüberküloz, trakeopati osteoplastika, bronkoskopi

### Summary

#### A Case of Tracheobronchopathia Osteochondroplastica Associated with Pulmonary Tuberculosis

Tracheobronchopathia osteochondroplastica (TO) is a rare and benign disorder of unknown cause affecting the large airways. It is characterized by the presence of multiple osseous and cartilaginous nodules in the submucosa of the trachea and main bronchi. A 47-year-old male was hospitalized in May 2004 for the complaints of cough, fever, chest pain and bilateral infiltration in chest x-ray. On clinical examination, except for alopecia areata, there was no other abnormality. Sputum examination did not reveal acid-fast bacilli or malignant cells. Computed tomography of chest showed bilateral patchy infiltration in posterior segments of both upper lobes of lung. Fiberoptic bronchoscopy revealed numerous pale white nodules (3-5 mm in size) projecting into lumen from the anterior and lateral walls of trachea to just the beginning of right main bronchus. Mycobacterium tuberculosis was cultured from bronchial lavage. We reported a case of TO in association with pulmonary tuberculosis for its rarity.

Archives of Lung: 2006; 7: 66-68

**Key Words:** Tracheobronchopathia osteochondroplastica, tuberculosis, tracheopathia osteoplastica, bronchoscopy

### Giriş

Trakeobronkopati Osteokondroplastika (TO) etyolojisi bilinmeyen nadir bir hastalıktır. Trakea ve ana bronşlarda submukozal yerleşimli çok sayıda kemik ve kıkırdak dokusu içeren nodüllerle karakterizedir. Benign özelliktedir ve spesifik bir semptom vermez. Bu nedenle olguların çoğu akciğer kanseri, geç rezorbe olan pnömoni, ateletazi gibi spesifik pulmoner patolojileri değerlendirmek için yapılan bronkoskopiler sırasında veya otopsielerde tesadüfen görülür. Çok

nadiren de entübasyon sırasında TO tanısı konmuştur (1). Sunulan olgu akciğer infiltrasyonlarının değerlendirilmesi sırasında tanı konulmuştur.

### Olgu

47 yaşında sigara içmeyen erkek hasta, Mayıs 2004'de bir haftadır olan öksürük, ateş ve göğüs ağrısı nedeni ile polikliniğe başvurdu. Anamnezinde hemoptizi, dispne, kilo kaybı ve balgam yoktu. Fizik muayenede alopesia areata dışında

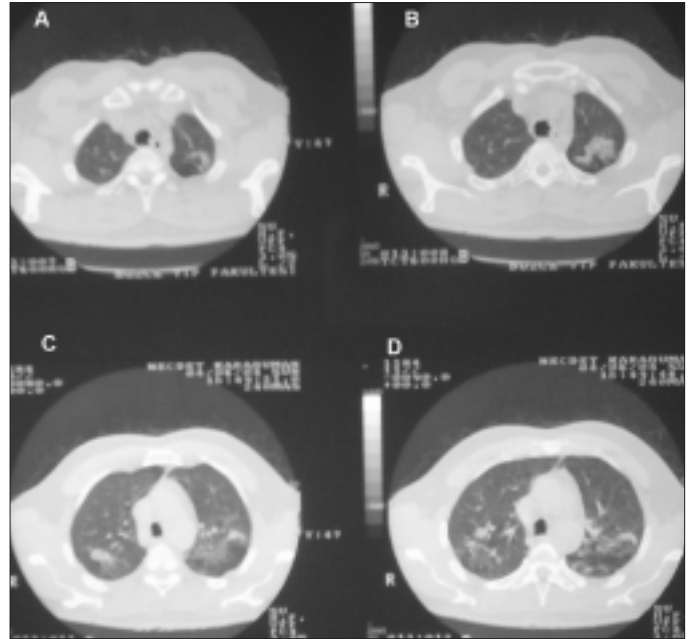
anormallik saptanmadı (Resim 1). Tetkiklerinde hemogram ve biyokimyasal parametreler normal sınırlarda idi. Balgam muayenesinde aside rezistan basil ve malign hücre görülmedi. Akciğer grafisinde bilateral üst zonlarda düşük dansiteli pnömonik opasiteler izlendi. Gaitada parazit ve gizli kan negatif bulundu. Toraks BT'de her iki akciğer üst loblarda dağınık yamalı infiltrasyonlar gözlemlendi (Resim 2). Bronkoskopide hemen kord vokallerden sonra başlayan ve posterioordaki membranöz kısım hariç tüm trakeayı tutan lümen içine uzanan çok sayıda 3-5 mm çaplı, soluk, beyaz nodüller görüldü (Resim 3). Bu nodüller yapı lateral duvarda sağ ana bronş içine doğru kısmen uzanım göstermekte idi. Bu nodüllerin arasındaki ve üzerindeki mukoza normal görünümde idi. Nodüller biyopsi forsepsi ile tutulduğunda sert ve kopmaya karşı dirençli olduğu görüldü. Multipl yüzeyel mukoza biyopsileri alındı. Bilateral üst loblardan bronş lavajı yapıldı. Histolojik değerlendirmede normal psödostratifiye silili solunum yolu epiteli görüldü. Bronş lavajı kültüründe tüberkülozis basili üredi.

Solunum fonksiyon testi normal sınırlarda idi. Geriye dönük değerlendirmede Toraks Yüksek Rezolüsyonlu BT'de trakea hava kolonunun konturlarında düzensizlik ve nodülarite görüldü.

## Tartışma

1857'de Walks, 38 yaşında pulmoner tüberküloz nedeni ile ölen bir erkek hastada trakea, bronşlar ve larenkste lümen içine uzanan çok sayıda kalsifiye depozitler görerek bu bozukluğu tanımlamıştır (2). Bronkoskopinin tanı amaçlı yaygın olarak kullanılmaya başlaması ile birlikte görülme sıklığı artmıştır. Hastalık çoğu olguda asemptomatik ve selim seyirlidir. Bu nedenle gerçek insidans bilinmemektedir. 8 yıllık prospektif 2180 olguyu kapsayan bir çalışmada 9 olguda görülmüştür (3). Buna karşı başka bir merkezde 20 bin bronkoskopide sadece 4 olguda bulunmuştur (4). 1974'e

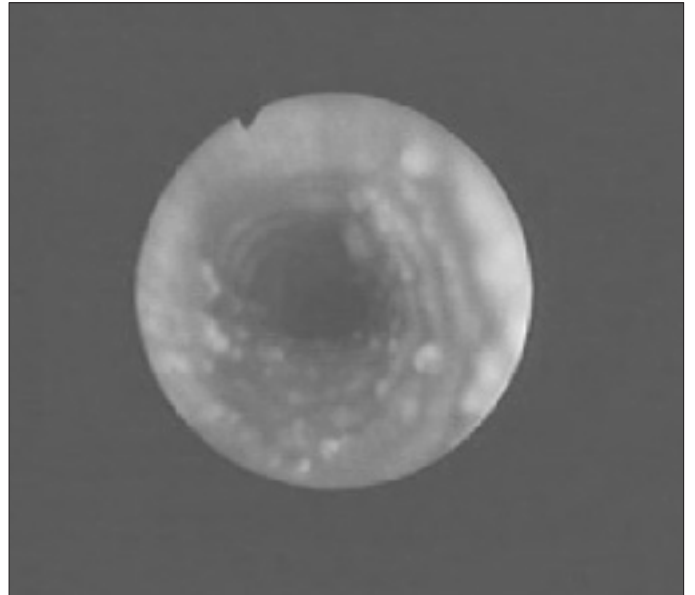
kadar 245, 1993'e kadar ise 371 olgu raporlanmıştır (4,5). Otopsi serilerinde 1/400 ila 3/1000, bronkoskopilerde 1/125 ila 1/6000 sıklığında bildirilmiştir. Ülkemizde ilk kez 1990 yılında bir TO olgusu raporlanmıştır ve aynı merkezde 1973-99 yılları arasında yapılan 19 bin bronkoskopide 2 olguya rastlanmıştır (6,7). Sunulan TO olgusu merkezimizde 1999-2004 yılları arasında yapılan 630 bronkoskopide ilk olgudur. Elli yaş üzeri erkeklerde daha sık olmakla birlikte genç bireylerde ve kadınlarda da raporlanmıştır (8). Etiyoloji ve patogenezini bilinmemektedir. Ailesel özellik bulunabileceği ile ilgili bir yayın mevcuttur (9). Kıkırdak trakeada enkondrozis ve ekzostozis, konnektif dokuda metaplazi veya alt solunum yollarının primer lokalize amiloidozisinin ileri derecede kalsi-



Resim 2: Toraks BT'de bilateral üst loblarda infiltrasyon izlendi.



Resim 1: Fizik muayenede alopesia areata sonrası yeniden çıkan saçlar kırışmış olarak görüldü.



Resim 3: Bronkoskopide okla işaretli membranöz kısım haricinde diffuz trakeal nodülarite izlendi.

fikasyona uğraması gibi pek çok değişik hipotez öne atılmıştır (10). Çok sayıda olgu tekrarlayan solunum yolu enfeksiyonları ile ilişkilendirilmiştir (11,12). Kronik enflamasyon ve enfeksiyon zemininde kemik morfogenetik protein-2 (BMP-2) ve transforming growth factor beta (TGF- $\beta$ 1) gibi yeni kemik oluşumu indükleyecilerinin sinerjik etki gösterdiği öne sürülmüştür (13). On beş olguluk bir seride tekrarlayan pulmoner enfeksiyonlar %20 oranında gözlenmiştir (14).

Patolojik olarak submukozal kıkırdak ve kemik nodüller genellikle lateral ve anterior duvarda olup posterior membranöz kısım ve üzerindeki epitel normaldir. Epitelde metaplazi olabilir.

Hastaların çoğu asemptomatiktir. Dispne, öksürük, hemoptizi, ses kısıklığı ve hışıltılı solunum görülebilir (11). Eşlik eden patolojilerin neden olduğu semptomlar ön planda olabilir. Bizim olgumuzda olduğu gibi, bazen semptomların hastalığın kendisine mi yoksa eşlik eden patolojilere mi ait olduğu ayırt edilemez (15,16).

Fizik muayenede, genellikle ileri olgularda gelişen komplikasyonlar veya hastalığa özgü olmayan eşlik eden sekonder patolojilere ait bulgular mevcuttur (17). Olgumuzda tüberküloz enfeksiyonuna sekonder bulgular yanında alopesia areata dikkat çekici idi. Alopesia areatanın bazı otoimmün hastalıklar ile birlikteliği bildirilmiş olmakla birlikte TO ile birlikteliği koinsidans olarak yorumlanabilir. TO ile kollojen vasküler hastalıklar arasında ilişki saptanmamıştır.

Rutin kan testleri genellikle normaldir. TO ve kalsiyum metabolizması arasında ilişki yoktur. Akciğer grafisi eşlik eden patolojiler dışında çoğu zaman normaldir. Özellikle lateral grafide bazen trakeobronşial ağaçta kalsifikasyon gözlenebilir. Toraks BT trakeal lümeneye çıkıntı yapan, trakea hava kolunu lateral ve anterior duvar konturlarını düzensizleştiren bazen kalsifiye olan nodülleri gösterebilir. Olgumuzda yüksek rezolüsyonlu BT'de trakea hava kolunu kenar konturlarında nodülerite ve kalsifikasyonlar gözlemlendi.

Tanı bronkoskopi sırasında lezyonların görülmesi ile konur. Bronkoskopik bulgular klasik olarak trakeobronşial ağaçta boncuk dizisi gibi beyaz kıkırdak veya kemiksi, üzeri normal mukoza ile kaplı nodüller şeklindedir (9). İleri olgularda büyüyen ve birleşen nodüller bronşial obstrüksiyona neden olabilirler (18). Lezyonlar büyük sıklıkla trakeanın 2/3 distal ucunda ve ana bronşlarda görülür. Fakat larenks, proksimal trakea ve segmental bronşlarda da görülebilir (19). Olgumuzda da tipik lezyonlar posterior membranöz kısım hariç tüm trakeayı tutmuştu. İleri olgularda SFT'de obstruktif patern görülür. Akım-volum halkası hastalığın gidişini takipte kullanılabilir (9). Ayırıcı tanıda amiloidoz, endobronşial sarkoidoz, kalsifik tüberküloz, papillomatosis ve Wegener granülomatosisi düşünülmalıdır (20).

Prognoz genellikle iyidir. Lezyonlar lokalizasyon ve boyutları ile ilişkili olarak obstruktif pnömoni ve ateletaziye yol açabilir (18,19). Tedavi genellikle konservatiftir. Tekrarlayan enfeksiyonlar antibiyotiklerle tedavi edilir. Medikal tedavi-

nin yetersiz kaldığı durumlarda cerrahi gündeme gelebilir (21). Cerrahi tedaviler trakeanın parsiyel rezeksiyonu, parsiyel larenjektomi, bronkoskopik müdahaleler şeklindedir. Endoskopik lazer uygulaması deneyimi sınırlı sayıdadır (9).

## Kaynaklar

1. Coetmeur D, Bovyn G, Leroux P, Niel-Duriez M. Tracheobronchopathia osteochondro-plastica presenting at the time of a difficult intubation. *Respir Med* 1997; 91: 496-98.
2. Fraser RS, Colman N, Muller NL, Pare PD, ed. *Diagnosis of Diseases of the Chest*; Vol 3: 4th edn. Philadelphia: W.B. Saunders Company; 1999: 2042.
3. Van Nierop MA, Wagenaar SS, van den Bosch JMM, Westermann CJ. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Eur J Respir Dis* 1983; 64: 129-33.
4. Mathlouthi A, BenRehouma C, BenM'Rad S, et al. Tracheobronchopathia osteochondro-plastica: Personal observation and review of literature. *Rev Pneumol Clin* 1993; 49: 156-62.
5. Martin C. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Arch Otolaryngol* 1974; 100: 290-93.
6. Karagoz T, Basozdemir N. Trakeobronkopatia osteokondroplastika. *Endoskopi Dergisi*; 1990; 2: 21-29.
7. Sevim T, Atac G, Horzum G, Tahaoglu C, Uskul B. Tracheobronchopathia osteochondro-plastica: A case report. *Turkish Respir J* 2002; 3: 72-75.
8. Nienhuis DM, Prakash UB, Edell ES. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1990; 99: 689-94.
9. Prakash UB, McCullough AE, Edell ES, Nienhuis DM. Tracheopathia osteoplastica: Familial occurrence. *Mayo Clin Proc* 1989; 64: 1091-96.
10. Akyol UM, Martin AA, Dhurandhar, Miller RH. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: A case report and a review of literature. *Ear Nose Throat J* 1993; 72 : 347-50.
11. Leske V, Lazor R, Coetmeur D, et al. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: a study of 41 patients. *Medicine (Baltimore)* 2001; 80: 378-390.
12. Celik G, Kumbasar OO, Ulger F, et al. Trakeobronkopatia osteokondroplastika. *Toraks Dergisi* 2002; 3: 200-203.
13. Tajima K, Yamakawa M, Katagiri T, Sasaki H. Immunohistochemical detection of bone morphogenetic protein-2 and transforming growth factor beta-1 in tracheopathia osteochondroplastica. *Virchows Arch* 1997; 431: 359-63.
14. Nienhuis DM, Prakash UBD, Edell ES. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1990; 99: 689-694.
15. Ustunsoy H, Senkaya I, Burma O, et al. Trakeobronkopatia Osteokondroplastika. *Tüberküloz ve Toraks Dergisi* 1999; 47: 104-6.
16. Baran A, Güngör S, Ünver E, Yılmaz A. Trakeobronkopatia Osteokondroplastika: Bir olgu nedeniyle Tüberküloz ve Toraks Dergisi 2004; 52: 183-185.
17. Karlikaya C, Yuksel M, Kilicli S, Candan L. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica. *Respirology* 2000; 5(4): 377-80.
18. Barthwal MS, Chatterji RS, Mehta A. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Indian J Chest Dis Allied Sci* 2004; 46: 43-46.
19. Hodges MK, Israel E. Tracheobronchopathia osteochondroplastica presenting as right middle lobe collapse: Diagnosis by bronchoscopy and computerized tomography. *Chest* 1998; 94: 842-44.
20. Meyer CN, Dossing M, Broholm H. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Respir Med* 1997; 91: 499-502.
21. Kutlu CA, Yeginsu A, Ozalp T, Baran R. Modified slide tracheoplasty for the management of tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Eur J Cardiothorac Surg* 2002; 21-42.