

# Karaciğer ve Akciğer Kistik Ekinokokkoz Nedeni ile Tedavisi Tamamlanan Hastada Spinal Bölgede Görülen Nüks: Nadir Bir Pediyatrik Spinal Kistik Ekinokokkoz Olgusu

*Recurrence from the Spinal Region of the Patient Whose Treatment Was Completed with Liver and Lung Cystic Echinococcosis: A Rare Pediatric Case of Spinal Cystic Echinococcosis*

© Fatma Kılınç<sup>1</sup>, © Ümmühan Çay<sup>1</sup>, © Özlem Özgür Gündeşlioğlu<sup>1</sup>, © Derya Alabaz<sup>1</sup>, © Kadir Oktay<sup>2</sup>, © Umur Anıl Pehlivan<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Çukurova Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı, Çocuk Enfeksiyon Bilim Dalı, Adana, Türkiye

<sup>2</sup>Çukurova Üniversitesi Tıp Fakültesi, Beyin ve Sinir Cerrahi Anabilim Dalı, Adana, Türkiye

<sup>3</sup>Çukurova Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji Anabilim Dalı, Adana, Türkiye

Cite this article as: Kılınç F, Çay Ü, Özgür Gündeşlioğlu Ö, Alabaz D, Oktay K, Pehlivan UA. Recurrence from the Spinal Region of the Patient Whose Treatment Was Completed with Liver and Lung Cystic Echinococcosis: A Rare Pediatric Case of Spinal Cystic Echinococcosis. Türkiye Parazit Derg 2022;46(3):246-8.

## ÖZ

Kistik ekinokokkoz, Echinococcus tenyasının neden olduğu paraziter bir hastalıktır. Hastalık sıklıkla karaciğer ve akciğer olmak üzere kaslar, kemik, böbrek, beyin, dalak gibi organları tutabilir. Spinal kistik ekinokokkoz hastalığı ise literatürde oldukça nadir bildirilmiştir. Bu raporda; karaciğer ve akciğerde multipl kistik ekinokokkoz tanısı ile 3,5 yıl aldığı albendazol tedavisi kesildikten bir yıl sonra yürümede zorlanma, bacak ağrısı şikayetiyle başvurması üzerine spinal kistik ekinokokkoz tanısı alan bir çocuk olgu sunulmuştur. Bu olguda da görüldüğü gibi, herhangi bir organda kistik ekinokokkoz tanısı konuldu ise tedavi tamamlansa da hayatın bir döneminde başka bir organda dahi nükslerin olabileceği unutulmamalıdır.

**Anahtar Kelimeler:** Kistik ekinokokkoz, spinal, nüks

## ABSTRACT

Cystic echinococcosis is a parasitic disease caused by the Echinococcus tapeworm. The disease can often affect organs such as the liver and lungs, muscles, bones, kidneys, brain, and spleen. Spinal cystic echinococcosis has been reported very rarely in the literature. In this report; we present a pediatric case with spinal cystic echinococcosis, who was diagnosed with multiple cystic echinococcosis in the liver and lungs and was admitted with complaints of difficulty in walking and leg pain 1 year after the albendazole treatment, which he had been taking for 3.5 years. If a diagnosis of cystic echinococcosis was made in any organ, recurrences may occur in another organ at some time, even if the treatment is completed.

**Keywords:** Cystic echinococcosis, spinal, recurrence

## GİRİŞ

Kistik ekinokokkoz (KE), Taeniidae ailesinin üyesi olan *Echinococcus* tenyasının enfeksiyonundan kaynaklanır. İnsanlara enfeksiyonun bulaşmasında köpek, koyun, deve, keçi, büyükbaş hayvanlar ve diğer otçul hayvanlar rol oynar. Köpekler son konaktır. İnsanlar

su, yiyecekler ve köpeklerle direkt temas ile parazit yumurtalarını alırlar. Yumurtalar midede larvalarını sindirim sistemine bırakırlar. Embriolar, bağırsak duvarları boyunca ilerler ve venlerle karaciğere ulaşır ve lenfatik yollarla akciğere gidebilirler. Eğer akciğeri de geçerse, kan dolaşımı ile herhangi bir organa yerleşebilirler (1). Sıklıkla karaciğer ve akciğer olmak



Geliş Tarihi/Received: 17.10.2021 Kabul Tarihi/Accepted: 24.06.2022

**Yazar Adresi/Address for Correspondence:** Fatma Kılınç, Çukurova Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı, Çocuk Enfeksiyon Bilim Dalı, Adana, Türkiye

**Tel/Phone:** +90 531 251 42 22 **E-Posta/E-mail:** dr.f.ozyurek@gmail.com **ORCID ID:** orcid.org/0000-0001-7059-245X

üzere kaslar, kemik, böbrek, beyin, dalak gibi organları tutabilir (2). Kemik tutulumu %0,5-4 arasındadır (3). Omurga tutulumu, kemik tutulumu olan olguların yaklaşık yarısında mevcuttur. En sık vertebral tutulum yeri %50 torakal bölge, sonra sırası ile lomber ve servikal bölge olarak bildirilmiştir (1,3,4). KE'deki cerrahi ve medikal tedavi gelişmelerine rağmen, günümüzde hala nüks en önemli sorunlardan biri olmaya devam etmektedir. Bu raporda akciğer ve karaciğer KE tanısı alan ve tedavisi tamamlanan, takiplerinde spinal bölgeden nüks olan olguyu sunduk.

## OLGU SUNUMU

Altı yaş erkek hasta, birkaç aydır olan ateş, kusma, karın ağrısı şikayeti ile yapılan batın ultrasonografisinde karaciğerinde çok sayıda kistler olması üzerine KE ön tanısı ile hastanemize sevk edilmişti.

Köyde yaşıyorlardı. Köpeklerle yakın temas öyküsü vardı. KE indirekt hemaglutinasyon testi (IHA): 1/2560 ve hemogramında eosinofil %8,4 olması dışında laboratuvarında özellik yoktu. Hastaya albendazol (15 mg/kg/gün, 2x, tok) tedavisi 30 gün kullanıp 15 gün ara verilecek şekilde başlandı. Abdomen ve toraks bilgisayarlı tomografisinde (BT) bilateral akciğerlerde ve karaciğerde multipl öncelikle evre 1 KE ile uyumlu lezyonlar saptandı (Şekil 1).

Kistlerin multipl olması nedeniyle çocuk cerrahi tarafından operasyonu yapılmadı. Beyin bilgisayarlı tomografi ve ekokardiyografide özellik yoktu. Toplam 3,5 yıl albendazol tedavisi aldı. Kontrol görüntülemesinde akciğerde sekel değişiklikler, karaciğerde kalsifiye inaktif kistler olması nedeniyle 10 yaşına geldiği zaman tedavisi kesildi. İlaç kesildikten bir yıl sonra 11 yaşındaki hasta; bacak ağrıları, yürümeye zorlanma, dik duramama şikayeti ile başvurdu. Spinal manyetik rezonans (MR) prekontrast sagittal plan T2, postkontrast aksiyel ve sagittal plan T1 ağırlıklı görüntülerde ekstremitelerde, epidural, Dünya Sağlık Örgütü sınıflamasına göre tip 2, Gharbi sınıflamasına göre tip 3 KE ile uyumlu, T12 vertebra düzeyinde spinal kanal içinde orta hat-orta hattın sağında sağ nöral foramene uzanan, en geniş 33x24x18 mm boyutunda, iyi sınırlı, ince duvarlı, septasyonlu, multiloküler görünümde, anteriorda vertebra korpusuna uzanım gösteren, dural keseyi posteriora deplase ve komprese eden kontrast tutmayan, benign karakterde kist görüldü (Şekil 2). Kontrol KE IHA 1/2560 saptandı. Hastaya tekrar albendazol tedavisi başlandı. Diğer organlar tarandı ve yeni kist saptanmadı. Beyin cerrahi tarafından opere edildi. Patolojisi; KE, içeriği ile uyumlu geldi. Kontrol MR bulgularına göre albendazol tedavisine 4 yıl daha devam edildi. Toplam 7,5 yıl albendazol tedavisi almıştı. Bu süreçte KE İHA düzeyinde azalma olmadı. Son 1 yıldır ilaçsız takibine devam edilmektedir.

## TARTIŞMA VE SONUÇ

*Echinococcus*; Türkiye'de en sık görülen parazitlerden biridir. Başlıca 4 alt cinsi bulunmaktadır. Bunlar *E. granulosus*, *E. multilocularis*, *E. vogeli* ve *E. oligarthus*'dir (3). *E. granulosus* kistik ekinokokoza neden olur ve bu klinik tablo ülkemizde ve dünyada en sık karşılaşılan klinik formdur. Asemptomatik olgular semptomatik olanlardan çok daha fazladır (5). Klinik semptomlar organ içindeki kistin yeri ve büyüklüğü, büyüme hızı ve baskısı, rüptürü, lenfatikler tıkanması veya kistlerin sekonder enfeksiyonlara duyarlılığı ile ilgilidir (6). Spinal tutulum nadirdir

ve tüm olguların %1'inden azında bulunur (2). En sık torakal sonra lomber bölge tutulur (4). Kistler epidural yerleşir ve tekli ya da multipl olabilir. İntradural ve ekstremitelerde tutulum nadirdir (7). Bizim hastamızda torakal bölge tutulmuştu ve epidural ve ekstremitelerde multipl kistler mevcuttu.

Portovertebral venöz şant sonucu sıklıkla vertebra korpus cismi primer olarak tutulurken disk aralıkları korunur (8). Spinal KE'li hastalarda vertebral kollapsa ya da hastalığın spinal kanala doğru yayılmasına bağlı olarak ağrı, güçsüzlük ve deformiteler ortaya çıkabilmektedir. Hastalar etkilenen vertebra düzeyinde lokal şişlik ve gerginlik, alt ekstremitelerde güçsüzlük, ağrı, duyu bozuklukları, mesane ve barsak disfonksiyonları gibi semptomlarla başvururlar (9). Bizim olgumuz yürüme bozukluğu ve bacak ağrıları şikayetleri ile başvurdu. Olgumuzda olduğu gibi KE öyküsü olan hastalarda herhangi bir nörolojik semptomla başvurduğunda mutlaka serebral ve spinal KE düşünülmeli ve hastalar bu yönden taranmalıdır.

KE tanısında ve takibinde radyolojik görüntüleme yanında serolojik testlerden faydalanılmaktadır. Tanı için görüntüleme yöntemleri serolojik yöntemlerden daha sensitiftir. Radyolojik özellikler çok karakteristik olmasına rağmen, KE hastalığının kesin tanısı cerrahi örneğin histopatolojik incelemesine dayanır. BT ve MR'de gelişmelere rağmen, bazı tanısal sorunlar devam etmektedir. MR KE tanısında daha sensitiftir (10). Olgumuzun spinal MR'sinde T12 vertebra düzeyinde ekstraaksiyel, ekstremitelerde multiloküler kist saptanmıştı. KE geçirme öyküsü, kırsal bölgede yaşam, seroloji pozitifliği olması nedeniyle KE düşünüldü ve daha



Şekil 1. Batın tomografide karaciğerde multipl öncelikle evre 1 kist hidatik ile uyumlu lezyonlar



Şekil 2. Spinal manyetik rezonans T12 vertebra düzeyinde spinal kanal içinde ekstraaksiyel, ekstremitelerde multiloküler kist görünümü

sonra yapılan biyopside patolojik olarak da tanı kesinleştirildi. KE tedavisi medikal ve cerrahi olarak yapılır. Spinal KE'de optimal tedavi seçeneği cerrahidir (10). Cerrahi hastalığın ilerlemesini ve hayatta kalma süresini uzatır. Medikal tedavide albendazol ve mebendazol kullanılmaktadır. Etkinliği net olmamakla birlikte tedaviye kısa süreli prazikuantel de eklenebilmektedir (11). Bizim olgumuzda albendazol başlandı ve sonrasında cerrahi işlem yapıldı. Hastaların takibi ve tedavi süresi için optimal yaklaşım belirsizdir. Hastanın özelliklerine ve güncel kaynaklara göre kişiselleştirilmelidir. Hastalarda takiplerde nükslerin olabileceği unutulmamalıdır. Nüksler genellikle postoperatif 2-28. ayda olmaktadır. Cerrahi sonrası rekürrens oranı %40'a kadar çıkmaktadır (10). İntradural, ekstramedüller tutulumunda rekürrens oranı düşük bildirilmiştir (12). Nüks için en az 10 yıllık takip ile birlikte en az 2 yıllık ek ilaç tedavisi tavsiye edilmektedir (12). Olgumuzda daha önce karaciğer ve akciğer KE nedeniyle tedavisi tamamlandıktan sonra ilaç kesildikten 1 yıl sonra başka bir vücut bölgesinde marjinal nüks olmuştur. Portovertebral şantlarla bu bölgeye ulaşan kistlerin antiparaziter tedavi kesildikten sonra büyüyen semptomatik hale gelmesi bir olasılıktır. Diğer bir olasılık ise hastanın yeniden enfekte olması sonucu gelişmiş olabileceğidir. Olgumuzda spinal KE ekstramedüller, epidural yerleşimliydi ve MR takipleriyle 4 yıl tedavi verildi. Başarılı kist çıkarılmasından yıllar sonra bile antikorlar yüksek kalabilir (13,14). Bizim olgumuzda da beş yıldır serolojik testler pozitif ve düşme gözlemlenmedi.

Spinal KE nadir görülmektedir. Ciddi nörolojik bulgularla karşımıza çıkabilmektedir. Görüntüleme yöntemleri tanı koymada ve tedavi planında çok önemlidir. Multiloküler kistlerin tedavisi güçtür. Hayatın bir döneminde rekürrenslerin ve sistemik yayılımın olabileceği daima akılda tutulmalıdır. Hastalar düzenli aralıklarla ve uzun yıllar takip edilmelidir. Sonuç olarak; hastalığın evcil hayvanlarda ve insanlarda meydana getirdiği önemli sağlık ve ekonomik problemlerinin önüne geçebilmek için KE karşı ciddi kontrol çalışmalarının yürütülmesi gerekmektedir.

## BİLGİLENDİRME

Bu çalışma 14. Ulusal Çocuk Enfeksiyon ve Bağışıklamama Kongresi'nde poster olarak sunulmuştur.

### \* Etik

**Hasta Onayı:** Yazılı hasta onamı çalışmaya katılan olgudan alınmıştır.

**Hakem Değerlendirmesi:** Editörler kurulunda olan kişiler tarafından değerlendirilmiştir.

### Yazarlık Katkıları

Cerrahi ve Medikal Uygulama: F.K., Ü.Ç., Ö.Ö.G., D.A., K.O., U.A.P., Konsept: Ü.Ç., Dizayn: Ü.Ç., Veri Toplama veya İşleme: F.Ö., Analiz

veya Yorumlama: Ö.Ö.G., D.A., Literatür Arama: F.Ö. Ö.Ö.G., D.A., Yazan: F.Ö., Ü.Ç.

**Çıkar Çatışması:** Yazarlar tarafından çıkar çatışması bildirilmemiştir.

**Finansal Destek:** Yazarlar tarafından finansal destek bildirilmemiştir.

## KAYNAKLAR

- Demirci E, Altun E, Çalık M, Subaşı ID, Şipal S, Gündoğdu, ÖB. Farklı lokalizasyonları ile kist hidatik olguları: Erzurum bölgesi. Türkiye Parazitolojisi Dergisi 2015; 39: 103-7.
- Ceviker SA, Yuksel C, Sener A, Onder T, Metineren, MH, Ozel C, Akgul, AS. Hydatid cyst of the spine: A rare case report. Türkiye Parazitolojisi Dergisi 2022; 46: 78-82.
- Jain A, Prasad G, Rustagi T, Bhojraj SY. Hydatid disease of spine: Multiple meticulous surgeries and a long term followup. Indian J Orthop 2014; 48: 529-32.
- Charles RW, Govender S, Naidoo KS. Echinococcal infection of the spine with neural involvement. Spine (Phila Pa 1976) 1988; 13: 47-9.
- Akkaya Işık A, Seyman D, Zerdali E, Ayan S, Kakaliçoğlu D, Ayaz T. Kist hidatik hastalığı nedeniyle takip ve tedavi edilen 170 olgunun irdelenmesi: Çok merkezli bir çalışma. Türkiye Parazitolojisi Dergisi 2020; 44: 197-203.
- Moro PL, Clinical manifestations and diagnosis of echinococcosis. Up to date (serial online) 1996 (cited 2022 April 4):1. Available from: URL: <https://www.uptodate.com/contents/clinical-manifestations-and-diagnosis-of-echinococcosis>
- Braithwaite PA, Less RF. Vertebral hydatid disease: radiological assessment. Radiology 1981; 140: 763-6.
- Neumayr A, Tamarozzi F, Goblirsch S, Blum J, Brunetti E. Spinal cystic echinococcosis--a systematic analysis and review of the literature: Part 1. Epidemiology and Anatomy. PLoS Negl Trop Dis 2013; 7: e2450.
- Çelik C, Şaşmaz M, Uçan H. Spinal hydatid cyst. Türkiye Klinikleri J Med Sci 2010; 30: 1073-7.
- Pamir NM, Özduman K, Elmacı I. Spinal hydatid disease. Spinal Cord 2002; 40: 153-60.
- Moro PL, Reddy DN. Treatment of echinococcosis. Up to date (serial online) 2022 (cited 2022 March 1). Available from: URL: <https://www.uptodate.com/contents/treatment-of-echinococcosis>
- Velasco-Tirado V, Alonso-Sardón M, Lopez-Bernus A, Romero-Alegria A, Burgillo FJ, Muro A, et al. Medical treatment of cystic echinococcosis: systematic review and meta-analysis. BMC Infect Dis 2018; 18: 306.
- El-On J. Benzimidazole treatment of cystic echinococcosis. Acta Tropica 2003; 85: 243-52.
- Galitza Z, Bazarsky E, Sneier R, Peiser J, El-On J. Repeated treatment of cystic echinococcosis in patients with a long-term immunological response after successful surgical cyst removal. Trans R Soc Trop Med Hyg 2006; 100: 126-33.