

Çocuklarda Tanıdan Tedaviye Hidatik Hastalığı: On Yıllık Tek Merkez Deneyimi

Hydatid Disease in Children from Diagnosis to Treatment: A 10-year Single Center Experience

İD Ayşegül Elvan Tüz¹, İD Yıldız Ekemen Keleş¹, İD Aslıhan Şahin¹, İD Gülnihan Üstündağ¹, İD Selin Taşar¹,
İD Eda Karadağ Öncel¹, İD Ahu Kara Aksay¹, İD Mustafa Onur Öztan², İD Gökhan Köylüoğlu²,
İD Ahmet Ergin Çapar³, İD Dilek Yılmaz Çiftdoğan⁴

¹Sağlık Bilimleri Üniversitesi, İzmir Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Enfeksiyon Hastalıkları Kliniği, İzmir, Türkiye

²Sağlık Bilimleri Üniversitesi, İzmir Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Cerrahi Kliniği, İzmir, Türkiye

³Sağlık Bilimleri Üniversitesi, İzmir Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Radyoloji Kliniği, İzmir, Türkiye

⁴İzmir Katip Çelebi Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Enfeksiyon Hastalıkları Anabilim Dalı, İzmir, Türkiye

Cite this article as: Tüz AE, Ekemen Keleş Y, Şahin A, Üstündağ G, Taşar S, Karadağ Öncel E, Kara Aksay A, Öztan MO, Köylüoğlu G, Çapar AE, Yılmaz Çiftdoğan D. Hydatid Disease in Children from Diagnosis to Treatment: A 10-year Single Center Experience. Türkiye Parazitoloj Derg 2022;46(3):189-94.

ÖZ

Amaç: Hidatik hastalığı, *Echinococcus granulosus*'un neden olduğu parazitik bir zoonozdur ve Türkiye'de endemiktir. Klinik bulgular çeşitlidir ve anatomik yerleşimle ilişkilidir. Bu raporda, çocuklarda hidatik hastalığının tanı, tedavi ve izlemine 10 yıllık deneyimimizle paylaşmayı amaçladık.

Yöntemler: Hidatik hastalığı tanılı 57 çocuk olgu, hastane kayıtlarından geriye dönük olarak incelendi. Tanı, klinik, serolojik ve radyolojik bulgulara dayandırıldı. Tedavi yanıtı klinik, radyolojik ve serolojik bulgularla değerlendirildi.

Bulgular: Toplam 57 olgunun erkek/kız oranı 2.4:1 ve yaş ortalamaları 113,6±45,9 ay idi. En sık görülen başvuru yakınması karın ağrısıydı (%42,1). Olguların 22'sinin (%38,6) eozinofili mevcutken; indirekt hemagglütinasyon test pozitifliği 27 olguda (%47,4) saptandı. Olguların 18'inde (%31,6) çoklu organ tutulumu vardı. Çoklu organ tutulumu olanlarda, kistlerin batın yerleşimli olma olasılığı daha yüksek bulundu (p=0,005). Tedavi amacıyla cerrahi girişim uygulanan 50 olgudan (%87,7), 45'inin (%78,9) açık cerrahi, 5'inin (%8,8) perkütan aspirasyon, enjeksiyon ve reaspirasyon yöntemi ile opere olduğu saptandı. Konservatif tedavide Albendazol verilen 52 (%91,2) olgu mevcuttu ve tedavi süreleri ortalama 15,5±17,2 aydı. Kist rüptürü gelişen 10 olgu (%17,5) mevcuttu ve semptom süreleri, kist rüptürü gelişmeyen olgulara göre daha kısaydı (p=0,017). Dispne görülen ve ağızdan kaya suyu gelen olgularda kist rüptürü olma olasılığı daha yüksek bulundu (sırasıyla p=0,001, p=0,005). İzlemde beş olguda (%8,8) nöks geliştiği görüldü.

Tartışma: Hastalığın endemik olduğu bölgelerde kişisel alışkanlık ve sağlık eğitiminden oluşan önleme ve kontrol programlarına rağmen, hidatik hastalığının aktif geçişi çocuklarda görülmekte ve önemli bir halk sağlığı sorunu olmaya devam etmektedir. Endemik bölgelerde şüpheli radyolojik ve klinik bulgular varlığında hidatik hastalığı mutlaka akla getirilmelidir. Tanı ve tedavi prosedürleri oluşması adına, kontrollü klinik çalışmalarla ihtiyaç duyulmaktadır.

Anahtar Kelimeler: Hidatik hastalığı, çocuk, tanı, tedavi, izlem

ABSTRACT

Objective: Hydatid disease caused by *Echinococcus granulosus* is a parasitic zoonosis and is endemic in Turkey. Clinical manifestations vary and are related to the anatomical location. In this report, we shared the diagnosis, treatment and follow-up of hydatid disease in children with a 10-year experience.

Methods: A total of fifty-seven children diagnosed with hydatid disease were analyzed retrospectively from hospital records. Diagnosis was based on clinical, serological and radiological findings. Treatment response was evaluated with clinical, radiological and serological findings.

Results: The male/female ratio of 57 cases was 2.4:1 and the mean age was 113.6±45.9 months. The most common presenting complaint was abdominal pain (42.1%). While 22 (38.6%) of the cases had eosinophilia; indirect hemagglutination test positivity was detected in 27 cases (47.4%). Multiple organ involvement was present in 18 cases (31.6%). In patients with multiple organ



Geliş Tarihi/Received: 10.03.2021 Kabul Tarihi/Accepted: 03.01.2022

Yazar Adresi/Address for Correspondence: Ayşegül Elvan Tüz, Sağlık Bilimleri Üniversitesi, İzmir Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Enfeksiyon Hastalıkları Kliniği, İzmir, Türkiye

Tel/Phone: +90 232 469 69 69 **E-Posta/E-mail:** aysegulelvan@hotmail.com **ORCID ID:** orcid.org/0000-0002-2822-612X

involvement, the possibility of cysts being located in the abdomen was higher ($p=0.005$). Of the 50 cases (87.7%), 45 (78.9%) were operated with open surgery and 5 (8.8%) with percutaneous aspiration-injection-reaspiration method for treatment. There were 52 (91.2%) patients who were given albendazole in conservative treatment and the mean duration of treatment was 15.5 ± 17.2 months. There were 10 cases (17.5%) who developed cyst rupture and the symptom duration was shorter than the cases without cyst rupture ($p=0.017$). Cyst rupture was more common in cases with dyspnea and fluid discharge from the mouth called rock water ($p=0.001$, $p=0.005$, respectively). Recurrence was observed in five cases (8.8%) during follow-up.

Conclusion: In areas where the disease is endemic, despite prevention and control programs consisting of personal habits and health education, active transmission of hydatid disease is seen in children and continues to be an important public health problem. Hydatid disease should definitely be considered in the presence of suspicious radiological and clinical findings in endemic areas. Controlled clinical studies are required for diagnosis and treatment procedures.

Keywords: Hydatid disease, child, diagnosis, treatment, follow-up

GİRİŞ

Hidatik hastalığı, *Echinococcus* türlerinin etken olduğu zoonotik bir hastalıktır. *Echinococcus granulosus* için kesin konakçı köpekler, kurtlar ve tilkilerdir. İnsanlar, bu döngüde tesadüfi ara konakçılardır. Enfeksiyon, parazit yumurtaları ile kontamine olmuş yiyecek, su veya toprağın yenmesi veya konakçı hayvanlarla doğrudan temas edilmesi yoluyla meydana gelir. Canlı parazit yumurtaları, insan bağırsağında onkosferler oluşturur ve mukozaya nüfuz ederek hematojen yolla diğer organlara yayılır (1).

E. granulosus kaynaklı hidatik hastalığı, Güney ve Orta Amerika, Orta Doğu ve Doğu Akdeniz, bazı Sahra altı Afrika ülkeleri, Batı Çin ve eski Sovyetler Birliği'nde önemli bir halk sağlığı sorunudur (2). Türkiye endemik bölgeler arasındadır ve ne yazık ki, endemik bölgelerin tamamında sistematik popülasyon araştırmaları bulunmamaktadır. En yüksek prevalans, %8,7 ile Moğol ve Kazak çoban toplulukları arasında görülmüştür (3).

Çocukluk çağında edinilen çoğu karaciğer ve akciğer kisti, kistlerin yavaş büyümesi nedeni ile yetişkin dönemde semptomatik hale gelir ve teşhis edilir. Merkezi sinir sisteminde (MSS) bulunan kistler, küçükken bile klinik semptomlara neden olabileceğinden, çocukluk çağında daha sıklıkla bulgu verir. Hidatik hastalığında klinik bulgular kistin yeri, boyutu ve durumuna göre değişir. Karaciğer tutulumunda, sağ üst kadranda ağrısı, bulantı ve kusma; akciğer tutulumunda öksürük, göğüs ağrısı, nefes darlığı ve hemoptizi; MSS tutulumunda nöbet, kafa içi basınç artışı bulguları, parestezi ve paralizi sıklıkla görülen semptomlardır. Karaciğer ve akciğer dışı organ tutulumları alışılmadık bir durum olup, önemli morbidite ve mortalite nedeni olabilmektedir (4).

Tanıda, seroloji ve görüntüleme yöntemlerinin kombinasyonundan yararlanılır. Serolojide en sık kullanılan yöntemler ELISA ve indirekt hemaglutinasyon (İHA) testidir. Seroloji, birincil tanı ve tedavi sonrası takip için faydalıdır (5). Görüntüleme ise, ultrasonografi uygulaması kolay ve nispeten ucuz olduğu için en yaygın kullanılan yöntemdir. Bilgisayarlı tomografi ve manyetik rezonans görüntülemesi, tedaviye rehberlik etmesi adına, daha fazla anatomik ayrıntıya ihtiyaç duyulduğunda yararlı olabilir (6).

Hidatik hastalığının tedavi seçenekleri arasında, cerrahi, perkütan tedavi, medikal tedavi ve klinik izlem yer alır (7). Cerrahi, komplike kistlerin tedavisi için tercih edilen yöntemdir. Perkütan aspirasyon, enjeksiyon ve reaspirasyon (PAIR) ise, daha az invaziv olup hem tanısal hem de terapötik bir prosedür olabilir. Albendazol, hidatik hastalığının tedavisinde birincil antiparazitik ajandır (8). Tedavinin başarısını değerlendirmek güçtür; çünkü enfeksiyonun doğal seyri oldukça değişken olabilir. Hidatik hastalığı tedaviden yıllar sonra bile tekrarlayabilir. İzlem için optimal yaklaşım belirsizdir ve hasta özellikleri ile mevcut kaynaklara göre kişiselleştirilmelidir. Nüksün değerlendirilmesi için genellikle beş yıla kadar takip tercih edilir (9).

Bu çalışmada, Türkiye'nin endemik bölge olması nedeniyle önemli sağlık problemlerinden biri olan hidatik hastalığında, son 10 yıllık deneyimlerimizi, literatür ışığında tartışmayı amaçladık.

YÖNTEMLER

Sağlık Bilimleri Üniversitesi, İzmir Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi'nde, Ocak 2010 ile Aralık 2020 tarihleri arasında hidatik hastalığı tanısı alan 57 çocuk olgu çalışmaya dahil edildi. Hastane sisteminden geriye dönük olarak, olguların tanı anındaki yaşları, cinsiyetleri, yaşadıkları yerler (kırsal/kentsel/sığınmacı), hayvan temas öyküsü, diğer aile bireylerinde kist hidatik varlığı, semptomları, tutulan organları, kist boyutları ve özellikleri kaydedildi.

Laboratuvar bulgularında, eozinofili varlığı diferansiyel sayımda en az %6 olarak kabul edildi. Serumda *E. granulosus* antikorlarının tespitine imkan sağlayan İHA yöntemi ticari kit (Fumouze, France) test prosedürüne uygun olacak şekilde, 1/320 değerler üzerindeki değerler pozitif kabul edildi.

Kist evrelemesi Gharbi sınıflamasına göre yapıldı. Bu sınıflamada, tip I pür kistik yapı; tip II membran ayrışması içeren kistik oluşum; tip III multipl septa ve kız vezikülleri içeren kist; tip IV yüksek internal eko, hiperekoik heterojen solid kitle görünümü; tip V kalsifiye kalın duvarlı kist görünümü içermekteydi (10).

Hastalara uygulanan medikal tedaviler ve süreleri, PAİR uygulanan veya açık cerrahi uygulanan hastaların ortalama hastanede kalış ve takip süreleri kaydedildi. Tedavi komplikasyonları ile uzun dönem izlemede olgularda nüks gelişip gelişmediği incelendi.

Bu çalışma, Sağlık Bilimleri Üniversitesi, İzmir Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi Etik Kurulu tarafından Helsinki Bildirgesi'ne uygun olarak onaylanmıştır (karar numarası: 2021/02-49). Çalışmaya katılan her katılımcıya çalışma hakkında detaylı bilgi verildi ve bilgilendirilmiş onam formu imzalatıldı.

İstatistiksel Analiz

İstatistiksel veriler IBM SPSS for Windows 25.0 sürümü (Chicago, IL) ile analiz edildi. Sayısal değişkenler için değerler, normallik dağılımına bağlı olarak medyan (minimum-maksimum) veya ortalama \pm standart sapma olarak verildi. Kategorik değişkenler sayı ve yüzde olarak sunuldu. Normal dağılımı sağlayan sürekli değişkenler Student's t-testi kullanılarak karşılaştırıldı. Normal dağılım sağlanmadığında Mann-Whitney U test kullanıldı. Kategorik değişkenler ki-kare testi kullanılarak karşılaştırıldı. P-değeri $<0,05$ olduğunda istatistiksel olarak anlamlı kabul edildi.

BULGULAR

Hidatik Hastalığının Genel Özellikleri

Hastanemizde, son 10 yılda izlenen, hidatik hastalığı tanımlı 57 olguda erkek/kız oranı 2.4:1'di, yaş ortalamaları $113,6\pm 45,9$ aydı.

Epidemiyolojik veriler incelendiğinde, 9 olgunun (%15,8) kırsal bölgede yaşadığı, 12 olgunun (%21,1) ise sığınmacı olarak Türkiye'ye göç ettiği öğrenildi. Olguların dördünde (%7) kedi veya köpek, ikisinde (%3,5) büyükbaş hayvan teması vardı. Hane içinde, diğer aile bireylerinde hidatik hastalığı tanısı alan dört olgu (%7) saptandı. Klinik veriler ışığında, 49 olgunun (%86) semptomatik olduğu; en sık başvuru yakınmasının karın ağrısı (24/57, %42,1) olduğu, bunu sırasıyla oksürük (11/57, %19,3), bulantı ve kusma (10/57, %17,5), ateş (9/57, %15,8) ve dispnenin (8/57, %14) izlediği görüldü. Laboratuvar parametreleri incelendiğinde, ortalama beyaz küre sayısı $12.035 \pm 5.034/\text{mm}^3$, sedimentasyon hızı $34,8 \pm 28,2$ mm/saat, total immünoglobulin E (IgE) düzeyinin ortancası 203,5 (15-9500) IU/mL idi, mutlak eozinofil sayısı ortanca 400 mm^3 (0-8300) idi. Olguların 22'sinin (%38,6) eozinofilisi mevcuttu. İHA test pozitifliği 27 olguda (%47,4) saptandı. Hidatik hastalığı, organ tutulumları açısından irdelendiğinde; 18 olgunun (%31,6) çoklu organ tutulumu vardı. Karaciğer yerleşimi olan 43 (%75,4), akciğer yerleşimi olan 22 (%38,6), MSS yerleşimi olan altı olgu (%10,5) mevcuttu. Olguların kist yerleşim bölgeleri Tablo 1'de gösterilmiştir. Kist boyutlarına bakıldığında, en büyük kistin ortalama boyu $6,4 \pm 2,9$ cm iken, ortanca genişliği 6 (1,1-16) cm saptandı. Kistler evrelemesine göre, 30 olgunun (%52,6) tip 1, 8 olgunun (%14) tip 2, 15 olgunun (%26,3) tip 3, ikişer olgunun (%3,5) ise tip 4 ve 5 sınıflarına dahil olduğu görüldü (Tablo 2). Tedavi amacıyla cerrahi girişim uygulanan 50 olgunun (%87,7); 45'ine (%78,9) açık cerrahi, 5'ine (%8,8) PAİR yöntemi uygulanmıştı. Bu olguların 47'sine (%82,4) cerrahi girişim esnasında skolosidal ajan verilmişti. Operasyon sonrası 12 olguda (%21,1) komplikasyon gelişti; ikişer olguda (%3,5) safra fistülü ve pnömotoraks, bir olguda (%1,8) karaciğer apsisi, bir olguda (%1,8) peritonit, PAİR yapılan birer olguda (%1,8) ise peritonit, sepsis ve anafilaksi saptandı. Konservatif tedavide 52 (%91,2) olguya albendazol verilmişti ve tedavi süreleri

ortalama $15,5 \pm 17,2$ aydı. On olguda (%17,5) kistin rüptüre olduğu görüldü. Rüptür gelişimi yedi olguda (%12,3) spontan, iki olguda (%3,5) travma sonrası, bir olguda (%1,8) ise operasyon esnasında meydana gelmişti. Olguların 53'ünün (%93) hastane yatış öyküsü mevcuttu. Bu olguların ortanca hastanede kalış süreleri 10 (1-70) gün idi. İzlemde beş olguda (%8,8) nüks geliştiği görüldü ve nüks gelişme zamanı ortalama $17 \pm 11,1$ ay idi. Olguların klinik izlem süreleri ortanca 30 (2-96) aydı.

Tekli ve Çoklu Organ Tutulumları Arasındaki Klinik Özellikler

Çoklu organ tutulumu erkeklerde daha sık saptandı ($p=0,036$). Çoklu organ tutulumu olan olgularda, dispne görülme olasılığı daha fazla iken; tekli organ tutulumu olanlarda karın ağrısı daha fazlaydı (sırasıyla; $p=0,003$, $p=0,008$). Laboratuvar parametreleri incelendiğinde, beyaz küre sayısının tekli organ tutulumu olan olgularda daha düşük olduğu görüldü ($p=0,026$). Çoklu organ tutulumu olan olgularda kistlerin batın yerleşimli olma olasılığı daha yüksekti ve olguların izlem süreleri daha uzundu (sırasıyla; $p=0,005$, $p=0,015$). Bu grupta olgular, epidemiyolojik özellikler, laboratuvar verileri, tedavi yöntemleri ve hastane yatışları açısından karşılaştırıldığında, değişkenler gruplar arasında benzerdi (Tablo 3).

Nüks Gelişen ve Gelişmeyen Olgular Arasındaki Klinik Özellikler

Nüks gelişen ($n=5$, %8,8) ve gelişmeyen olguların cinsiyet, yaş, epidemiyolojik özellikler, tedavi yöntemleri ve hastane yatışlarının benzer olduğu saptanırken, splenomegali nüks gelişen olgularda daha sıkı ($p=0,006$). Nüks gelişen olguların %80'inde eozinofili mevcuttu. Çalışmamızda bir olguda anafilaksi görüldü ve bu olgunun izleminde nüks geliştiği saptandı.

Kist Rüptürü Gelişen ve Gelişmeyen Olgular Arasındaki Klinik Özellikler

Kist rüptürü gelişen olgularda ($n=10$, %17,5), erkek cinsiyet daha sıkı ($p=0,023$). Dispnesi olan ve ağızdan kaya suyu gelen olgularda kist rüptürü sıklığı daha yüksekti (sırasıyla; $p=0,001$, $p=0,005$). Kist rüptürü gelişen olgularda semptom süresi, kist rüptürü gelişmeyen olgulara göre istatistiksel anlamlı olarak daha kısaydı ($p=0,017$).

TARTIŞMA

Son yıllarda dünya çapında, hidatik hastalığı insidansı ve yaygınlığı, hastalık kontrol programları sayesinde önemli ölçüde azalmıştır (11). Buna rağmen, gelişmekte olan ülkelerde, özellikle kırsal alanlarda hidatik hastalığı halen yaygın bir sağlık sorunu olmaya devam etmektedir. Endemik bölgelerden biri olan Türkiye'de yaptığımız bu çalışma ile, hidatik hastalığını

Tablo 1. Hidatik hastalığında kist yerleşim bölgeleri

Organ	Bölge	Sayı (n)	Yüzde (%)
Karaciğer			
	Sağ lob	30	52,6
	Sol lob	8	14
	Sağ ve sol lob	5	8,8
Akciğer			
	Sağ üst lob	4	7
	Sağ orta lob	2	3,5
	Sağ alt lob	4	7
	Sol üst lob	4	7
	Sol alt lob	8	14
Merkezi sinir sistemi			
	Serebrum	3	5,3
	Posterior fossa	2	3,5
	Spinal	1	1,8
Kalp			
	Septum	1	1,8
Kas		2	3,6
Dalak		1	1,8
Retroperitoneal bölge		1	1,8

Tablo 2. Hidatik hastalığında Gharbi sınıflaması

Kist evre	Sayı (n)	Yüzde (%)
1	30	52,6
2	8	14
3	15	26,3
4	2	3,5
5	2	3,5

Tablo 3. Hidatik hastalığında tekli ve çoklu organ tutulumları arasındaki klinik özellikler

	Tekli organ tutulumu (n=39)	Çoklu organ tutulumu (n=18)	p
Cinsiyet*			0,036
Erkek	24 (61,5)	16 (88,9)	
Kız	15 (38,5)	2 (11,1)	
Yaş (ay)**	117,8±45,7	104,6±46,6	0,317
Semptom*			
Ateş	4 (10,3)	5 (27,8)	0,076
Öksürük	5 (12,8)	6 (33,3)	0,054
Hemoptizi	2 (5,1)	2 (11,1)	0,360
Dispne	2 (5,1)	6 (33,3)	0,003
Göğüs ağrısı	2 (5,1)	1 (5,6)	0,677
Karın ağrısı	21 (53,8)	3 (16,7)	0,008
Bulantı/kusma	8 (20,5)	2 (11,1)	0,412
Epigastriyumda şişlik	2 (5,1)	2 (11,1)	0,360
Laboratuvar bulguları			
Total WBC (10 ³ /uL)**	10,856±4039	14,588±6076	0,026
Eozinofil yüzdesi**	7,2±9,3	13,8±18	0,156
Mutlak eozinofil sayısı***	300 (0-4200)	750 (14-8300)	0,050
Sedimentasyon (mm/saat)**	36±25,6	33±33,1	0,813
Total Ig E (IU/mL)**	87,1 (15-1290)	523,5 (43,9-9500)	0,051
Kist lokalizasyonu*			0,005
Batın	26 (66,7)	18 (100)	
Diğer	13 (33,3)	0 (0)	
Kist özellikleri			
Kist boyu**	6,6±3,1	6,1±2,5	0,557
Kist genişliği***	5,3 (4-6,5)	3 (1,5-10)	0,966
Albendazol tedavisi*	32 (82,1)	14 (77,8)	0,285
Albendazol tedavi süresi (ay)**	10,3±9,5	20,7±21,8	0,184
Cerrahi yöntem*			0,560
Açık cerrahi	30 (76,9)	15 (83,3)	
PAİR	3 (7,7)	2 (11,1)	
Hastane yatışı*	35 (89,7)	18 (100)	0,208
Hastane yatış süresi (gün)**	9 (1-70)	11 (6-22)	0,504
Kist rüptürü*	6 (15,4)	4 (22,2)	0,528
Nüks gelişimi*	3 (7,7)	2 (11,1)	0,509
Nüks gelişme zamanı (ay)**	20,3±14,3	12±0	0,491
İzlem süresi (ay)**	30 (2-69)	44 (4-96)	0,015
WBC: Beyaz küre sayısı, Ig E: İmmünoglobulin E, PAİR: Perkütan aspirasyon, enjeksiyon ve reaspirasyon *n, % **ortalama ± standart sapma ***ortanca (minimum-maksimum)			

tüm yönlerini ele almayı ve hidatik hastalığının tanı ve tedavi protokollerindeki eksiklikleri vurgulamayı amaçladık.

Çalışmamızda olguların yaklaşık üçte ikisinin erkek olduğu dikkati çekmiştir. Bu bulgu İran, Fas ve Çin'den bildirilen yayınlarla benzerlik göstermektedir (12-14). Enfeksiyon kaynaklarına maruziyeti artıran davranışsal etkinlikler ve alışkanlıklar, bu cinsiyet farklılığının nedeni olabilir diye düşünülmüştür.

Çalışmamızda en sık başvuru şikayeti karın ağrısıdır, bunu öksürük, bulantı-kusma, ateş ve dispne takip etmektedir. İran'dan bildirilen hepatik hidatik hastalığı olan 100 pediyatrik olgunun incelendiği çalışmada, sık görülen başvuru yakınmaları; karında şişlik (%50) ve ateş (%12) olarak bildirilmiştir (15). Aynı merkezde, 72 pediyatrik pulmoner hidatik hastalığı olan olgunun incelendiği başka bir çalışmada ise, öksürük (%32), göğüs ağrısı (%13) ve hemoptizi (%12) en sık görülen başvuru yakınmaları olarak bildirilmiştir (16). Çalışmamızda, hidatik hastalığı olan olguların tüm organ tutulumları aynı çalışmada incelendiğinden, farklı sistemlere ait semptomlar birbirine yakın sıklıkta bulunmuştur. En sık hepatik hidatik hastalığı varlığı nedeniyle en sık başvuru şikayetinin de karın ağrısı olduğu düşünülmüştür.

Literatürde, olguların %20-34'ünde eozinofili bildirilmiş ve kistten içerik sızıntısı ile ilişkili olabileceği düşünülmüştür (17). Eozinofili, özellikle komplike kistlerde önemli bir laboratuvar bulgusudur (18). Çalışmamızda ise olguların yaklaşık üçte birinde eozinofili saptanmıştır. Nüks gelişen hastaların %80'inde eozinofili varlığı da bir diğer dikkat çekici bulgudur. Bilindiği kadarıyla, literatürde nüks gelişen hastalarda bu denli yüksek eozinofili oranı bildirilmemiştir.

Hidatik hastalığın teşhisi esas olarak görüntüleme sonuçlarına dayanmaktadır; ancak epidemiyolojik veriler, klinik bulgular ve serolojik testler de tanıyı doğrulamada yardımcı olmaktadır. Bu kombinasyonlar hidatik hastalığın tanısında yüksek bir tespit oranı sağlamaktadır (19). Serolojik test pozitifliği tanıyı desteklemekle birlikte negatif olması hastalığı dışlamamaktadır. Raporumuzda, olguların yaklaşık yarısında İHA testi negatifken diğer tanısal yöntemlerle birlikte tanı konulmuştur. Bu nedenle, klinik şüphe varlığında olgular hem serolojik yöntemler hem de görüntüleme sonuçları ile birlikte değerlendirilmelidir.

Çalışmamızda, çocuklarda hidatik hastalığının en sık karaciğer sağ lob (%52,6) yerleşimli olduğunu gözlemlenmiştir. İran merkezli benzer bir çalışmada bu oran %42,1 saptanmıştır (20). Tunuslu çocuklarda, hidatik hastalığı üzerine yapılan bir araştırmada ise, kistlerin en yaygın olduğu bölge akciğer (%61,8); ikinci yaygın olduğu bölge karaciğer (%34,8) olarak bildirilmiştir (21). Farklı ülkelerden farklı sonuçlar göz önünde bulundurulduğunda en sık yerleşim bölgesini söylemek zordur. Ancak parazitinin vücuda ilk giriş yolunun gastrointestinal sistem olduğu düşünülürse, portal ven aracılığıyla öncelikle karaciğer tutulumunun gerçekleşmesi, karaciğerin en çok etkilenen organ olabileceğini düşündürmektedir (22). Literatürde, birçok çalışmada en sık tutulan üçüncü organın dalak olduğu bildirilmiştir (23). Çalışmamızda, karaciğer ve akciğer tutulumunu takiben üçüncü sırada MSS tutulumu (%10,5) varken; dalak tutulumu olan sadece bir olguya (%1,8) rastlanmıştır. Diğer nadir tutulumlara bakıldığında, yumuşak doku hidatik hastalığı, olgularda %1 ila %4 arasındaki sıklıkta bildirilmiştir. Hidatik kistlerin büyümesi için kas kitlesi uygun olmasa da, üst ve alt ekstremitelerin proksimal kısımları, artmış vaskülarite nedeniyle etkilenebilmektedir (24). Literatürdeki orana benzer olarak, çalışmamızda kas tutulumu olan iki olgu (%3,6) saptanmıştır. Kardiyak hidatik kistlerin

görülme sıklıkları nadir olup, tüm hidatik hastalığı olgularının sadece %0,2-2'sini oluşturmaktadır ve tedavi edilmezse yüksek mortaliteye neden olmaktadır (25). Raporumuzda, hidatik hastalığı olgularımızın sadece birinde (%1,8) kalp septumunda hidatik kist tespit edilmiştir ve erken dönemde opere edilerek, olası ciddi sonuçların önüne geçilmiştir.

Hidatik hastalığında çoklu organ tutulum insidansının, parazitin genotipine ve coğrafi bölgeye göre %10-15 aralığında bir değişim gösterdiği bildirilmiştir (26). Ancak çalışmamızda, belirtilenden daha yüksek oranda olgunun (%31,6) çoklu organ tutulumu olduğu dikkati çekmiştir. Buna göre, endemik bölgelerde vücudun herhangi bir yerinde hidatik kist saptandığında, diğer organ taramaları da titizlikle yapılmalıdır.

Hidatik hastalığının tedavisinde kullanılan cerrahi prosedürlerin, medikal tedavinin ve klinik izlemin, karşılaştırmalı olarak analiz edildiği randomize kontrollü çalışmalar olmaması nedeniyle, hangi yaklaşımın daha üstün olduğu belirsizliğini korumaktadır (19). Çalışmamızda, cerrahi geçiren olguların %90'ının açık cerrahi yöntem ile opere olduğunu, yalnızca %10 olguda PAİR yöntemi kullanıldığı saptanmıştır. Açık cerrahi yöntem ile opere olan olguların %20'sinde operasyon sonrası komplikasyon gelişmişken, bu oran PAİR yöntemi uygulanan olgularda %60'a yükselmiştir. Buna bağlı olarak, daha az invaziv bir yöntem olan PAİR uygulamasının, yüksek oranda komplikasyon riskine de neden olabileceği akılda tutulmalı, olgular özelinde tedavi yöntemine karar verilmelidir.

Konservatif tedavide albendazol tercih edilmektedir. Geçmişte ara verilerek kullanılan bu tedavinin, aralıksız üç ila altı ay kullanılabilmesi bildirilmiştir. Akciğer tutulumunda, tedavi süresi kistin tipine göre iki yıla kadar uzayabilmektedir (27). Çalışmamızda olguların tamamına yakınının albendazol tedavisi aldığı ve ortalama tedavi sürelerinin yaklaşık 15 ay olduğu görülmektedir. Literatürde çocuklarda tedavi endikasyonu, süresi ve ilaç güvenilirliği ile ilgili az sayıda çalışma mevcuttur. 2019 yılında yayınlanan Yunanistan merkezli bir çalışmada, 39 yıl boyunca hidatik hastalığı olan çocuk olgular, demografik, çoklu organ tutulumları, tanı ve tedavi yöntemleri açısından analiz edilmiş ve çocuklarda tedavi yaklaşımı için bir algoritma oluşturulmuştur. Buna algoritmada, operasyondan bir ila dört hafta önce albendazol tedavisi verilmesi; 10 cm'den küçük komplike olmayan kistlerde kistektomi sonrası hastaların uzun süreli takibi ve operasyon sonrası bir ila üç ay daha medikal tedaviye devam edilmesi önerilmiştir. Komplike olmayan 10 cm'den büyük kistlerde kistektomi ve kapitonaj; herhangi bir boyuttaki komplike kist varlığında segmentektomi veya lobektomi sonrası hastaların uzun süre takip edilmesi; inaktif veya kalsifiye kist görülen olguların görüntüleme yöntemleri ile izlemi önerilmiştir (28).

Kendiliğinden ya da travma sonucu gelişen kist rüptürü, kist içeriğinin vücut boşluklarına veya dolaşıma dağılması sonucu anafilaktik reaksiyona neden olabilir (29). Çalışmamızda 10 olguda (%17,5) kist rüptürü gelişmiş olup, hiçbirinde anafilaktik reaksiyon gözlenmemiştir. Farklı olarak, kist rüptürü gelişen olgularımızda ağızdan kaya suyu gelme şikayetinin yanı sıra dispne de anlamlı bulunmuştur ve bu olguların başvuruya kadar geçen semptom sürelerinin daha kısa olduğu saptanmıştır. Buna bağlı olarak, akut gelişen semptom varlığında kist rüptürünün akılda tutulması önemlidir.

İzlemede, olguların %8,8'inde nüks gelişmiştir. Nüks riski nedeni ile olgular, ilk iki yıl içinde üç ila altı ayda bir; sonrasında da yılda

bir kez olmak üzere beş yıl boyunca takip edilmelidirler. Serolojik testler tek başına nüks veya rezidüel hastalığı ayırt edemediğinden, olguların takibinde serolojik testlerin görüntüleme yöntemleriyle kombine edilmesi önerilmektedir (30). Bizim nüks gelişen olgularımızda tanı, görüntüleme yöntemleri ile konulmuştur.

SONUÇ

Hidatik hastalığı gelişmekte olan ülkelerde yaygın olarak görülmektedir. Klinik şüphe varlığında, olgular serolojik ve görüntüleme yöntemleri ile incelenmeli ve hidatik hastalığı saptandığında, eşlik edebilecek organ taramaları yapılmalıdır. Cerrahi ya da medikal tedavi uygulanıp, klinik izlemede alınan olgularda ise nüks açısından uyanık olunmalıdır.

Ülkemizde endemik olarak görülen hidatik hastalığı ile ilgili, önemli ilerlemeler sağlanmış olmasına rağmen, hastalığın tanı ve tedavisindeki belirsizlikler devam etmektedir. Farklı terapötik yaklaşımların karşılaştırıldığı kontrollü klinik çalışmalara ihtiyaç vardır. Bu amaçla yapılan çalışmalarla standardize edilmiş tanı ve tedavi prosedürleri oluşturulmalıdır.

*Etik

Etik Kurul Onayı: Bu çalışma, Sağlık Bilimleri Üniversitesi, İzmir Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi Etik Kurulu tarafından Helsinki Bildirgesi'ne uygun olarak onaylanmıştır (karar numarası: 2021/02-49).

Hasta Onayı: Çalışmaya katılan her katılımcıya çalışma hakkında detaylı bilgi verildi ve bilgilendirilmiş onam formu imzalatıldı.

Hakem Değerlendirmesi: Editörler kurulu ve editörler kurulu dışında olan kişiler tarafından değerlendirilmiştir.

*Yazarlık Katkıları

Cerrahi ve Medikal Uygulama: M.O.Ö., G.K., A.E.Ç., Konsept: E.K.Ö., D.Y.Ç., Dizayn: E.K.Ö., D.Y.Ç., Veri Toplama veya İşleme: A.E.T., Y.E.K., A.Ş., G.Ü., S.T., Analiz veya Yorumlama: E.K.Ö., A.K.A., D.Y.Ç., Literatür Arama: A.E.T., Y.E.K., A.Ş., G.Ü., S.T., Yazan: A.E.T.

Çıkar Çatışması: Yazarlar tarafından çıkar çatışması bildirilmemiştir.

Finansal Destek: Yazarlar tarafından finansal destek almadıkları bildirilmiştir.

KAYNAKLAR

1. Eckert J, Deplazes P. Biological, epidemiological, and clinical aspects of echinococcosis, a zoonosis of increasing concern. *Clin Microbiol Rev* 2004; 17: 107-35.
2. Moro P, Schantz PM. Cystic echinococcosis in the Americas. *Parasitol Int* 2006; 55(Suppl): S181-6.
3. Wang GZ, Feng XH, Chu XD, Erxiding, Amina, Zhou JX, et al. Epidemiological study on human echinococcosis in Hobukesar Mongolian autonomous county of Xinjiang. *Chin J Endem* 2009; 28: 214-7.
4. Frider B, Larrieu E, Odriozola M. Long-term outcome of asymptomatic liver hydatidosis. *J Hepatol* 1999; 30: 228-31.
5. Riganò R, Profumo E, Ioppolo S, Notargiacomo S, Ortona E, Teggi A, et al. Immunological markers indicating the effectiveness of pharmacological treatment in human hydatid disease. *Clin Exp Immunol* 1995; 102: 281-5.
6. von Sinner WN, Rifai A, te Strake L, Sieck J. Magnetic resonance imaging of thoracic hydatid disease. Correlation with clinical findings, radiography, ultrasonography, CT and pathology. *Acta Radiol* 1990; 31: 59-62.
7. Stojković M, Weber TF, Junghans T. Clinical management of cystic echinococcosis: state of the art and perspectives. *Curr Opin Infect Dis* 2018; 31: 383-92.

8. Smego RAJ, Bhatti S, Khaliq AA, Beg MA. Percutaneous aspiration-injection-reaspiration drainage plus albendazole or mebendazole for hepatic cystic echinococcosis: a meta-analysis. *Clin Infect* 2003; 37: 1073-83.
9. Golemanov B, Grigorov N, Mitova R, Genov J, Vuchev D, Tamarozzi F, et al. Efficacy and safety of PAIR for cystic echinococcosis: experience on a large series of patients from Bulgaria. *Am J Trop Med Hyg* 2011; 84: 48-51.
10. Gharbi HA, Hassine W, Brauner MW, Dupuch K. Ultrasound examination of the hydatid liver. *Radiology* 1981; 139: 459-63.
11. Tünger Ö. [Epidemiology of cystic echinococcosis in the world]. *Turkiye Parazitol Derg* 2013; 37: 47-52.
12. Amahmid O, El Guamri Y, Zenjari K, Bouhout S, Ait Moh M, Boraam F, et al. The pattern of cystic echinococcosis in children in an endemic area in Morocco. *J Parasit Dis* 2019; 43: 209-14.
13. Fahimzad A, Karimi A, Tabatabae SR, Armin S, Ghanaei RM, Fallah F, et al. Overview of hydatid disease in Iranian children. *Arch Pediatr Infect Dis* 2015; 3: 1-5.
14. Wang Q, Qiu JM, Schantz P, He JG, Ito A, Liu FJ. Investigation of risk factors for development of human hydatidosis among households raising livestock in Tibetan areas of western Sichuan province. *Zhongguo Ji Sheng Chong Xue Yu Ji Sheng Chong Bing Za Zh* 2001; 19: 93-6.
15. Mirshemirani A, Khaleghnejad A, Kouranloo J, Sadeghian N, Rouzrokh M, Hasas-Yeganeh S. Liver Hydatid Cyst in Children (A 14-year Review). *Iran J Pediatr* 2011; 21: 385-9.
16. Mirshemirani AR. Surgical treatment of pulmonary hydatid cyst in 72 children. *Tanaffos* 2009; 8: 56-61.
17. Halezeroglu S, Okur E, Tanyü MO. Surgical management for hydatid disease. *Thorac Surg Clin* 2012; 22: 375-85.
18. Sen P, Demirdal T, Nemli SA. Evaluation of clinical, diagnostic and treatment aspects in hydatid disease: analysis of an 8-year experience. *Afr Health Sci* 2019; 19: 2431-8.
19. McManus DP, Gray DJ, Zhang W, Yang Y. Diagnosis, treatment, and management of echinococcosis. *BMJ* 2012; 344: e3866.
20. Sanaei Dashti A, Kadivar MR, Alborzi A, Sadeghi E, Pouladfar GR, Bagherian N, et al. Analysis of hospital records of children with hydatid cyst in south of Iran. *J Parasit Dis* 2017; 41: 1044-8.
21. M'rad S, Oudni-M'rad M, Boubaker G, Bouazzi L, Gorcii M, Nouri A, et al. [Retrospective study of the distribution and the fertility of hydatid cysts in the child in Tunisia]. *Pathol Biol (Paris)* 2012; 60: 166-9.
22. Saidi Sİ. Karaciğer kist hidatiği. In: Sayek İ editör. *Temel Cerrahi*. 2. Baskı. Güneş Kitabevi; 1996:1239-45.
23. Gun E, Etit D, Buyuktalanci DO, Cakalagaoglu F. Unusual locations of hydatid disease: A 10-year experience from a tertiary reference center in Western Turkey. *Ann Diagn Pathol* 2017; 29: 37-40.
24. Gougoulas NE, Varitimidis SE, Bargiotas KA, Dovas TN, Karydakos G, Dailiana ZH. Skeletal muscle hydatid cysts presenting as soft tissue masses. *Hippokratia* 2010; 14: 126-30.
25. Yekeler I, Koçak H, Aydın NE, Başoğlu A, Okur A, Şenocak H. Akciğerlerde bilateral ve sağ ventrikül ön duvarında lokalize bir kardiyak hidatik kist olgusu. *Torak Kalp Damar Cerrahisi* 1993; 41: 261-3.
26. Schneider R, Gollackner B, Schindl M, Tucek G, Auer H. Echinococcus canadensis G7 (pig strain): an underestimated cause of cystic echinococcosis in Austria. *Am J Trop Med Hyg* 2010; 82: 871-4.
27. Hemphill A, Stadelmann B, Rufener R, Spiliotis M, Boubaker G, Müller J, et al. Treatment of echinococcosis: albendazole and mebendazole--what else? *Parasite* 2014; 21: 70.
28. Petropoulos AS, Chatzoulis GA. Echinococcus Granulosus in Childhood: A Retrospective Study of 187 Cases and Newer Data. *Clin Pediatr (Phila)* 2019; 58: 864-88.
29. Sanei B, Hashemi SM, Mahmoudieh M. Anaphylactic shock caused by nonruptured hydatid cyst of the liver. *J Gastrointest Surg* 2008; 12: 2243-5.
30. Moro P, Schantz PM. Echinococcosis: a review. *Int J Infect Dis* 2009; 13: 125-33.