

## OLGU SUNUMU

Neşe Akın<sup>1</sup>,  
Talha Dumlu<sup>2</sup>,  
Ege Güleç Balbay<sup>3</sup>,  
Ümran Yıldırım<sup>4</sup>,  
Naciye Karataş<sup>2</sup>,  
Ebru Küçük<sup>2</sup>,  
Ali Nihat Annakkaya<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Göğüs Hastalıkları Servisi, Bartın Devlet Hastanesi, Bartın,

<sup>2</sup>Düzce Üniversitesi Tıp Fakültesi Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, Düzce,

<sup>3</sup>Göğüs Hastalıkları Servisi, Düzce Atatürk Devlet Hastanesi, Düzce,

<sup>4</sup>Düzce Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji Anabilim Dalı, Düzce

Bu vaka Türkiye Solunum Araştırmaları Derneği'nin 29. Yıllık Kongresinde poster olarak sunulmuştur (TUSAD 29. Yıllık Kongresi Fethiye-Muğla 2007)

### İletişim adresi:

Dr. Talha Dumlu

Düzce Üniversitesi Tıp Fakültesi,

Göğüs Hastalıkları AD, 81620

Konuralp-Düzce

Tel: +905053128272

Faks: +903805421387

E-mail: [drtalha25@myynet.com](mailto:drtalha25@myynet.com)

## Büyük Havayolu Obstrüksiyonuna Neden Olan Bir Trakeobronkopati Osteokondroplastika Olgusu

### ÖZET

Trakeobronkopati Osteokondroplastika (TO) büyük havayollarını (trakea ve ana bronşları) tutan nadir, yavaş ilerleyen ve selim bir hastalıktır. Trakea ve ana bronşlarda submukozal yerleşimli çok sayıda kemik ve kıkırdak dokusu içeren nodüllerle karakterizedir. Göğüs ağrısı yakınmasıyla polikliniğimize başvuran ve Solunum Fonksiyon Testinde büyük havayolu obstrüksiyonu olan 65 yaşında erkek hastaya yapılan Toraks BT ve Bronkoskopik tetkikler sonucu TO tanısı kondu. Nadir görülen ve selim karakterde bir bozukluk olmasına rağmen bazen büyük havayolu obstrüksiyonuna neden olabilen ve hasta takibinde akım-volüm halkasının önemini vurgulamak için sunduk.

**Anahtar Kelimeler:** Trakeobronkopati Osteokondroplastika, Trakeopati Osteoplastika, Büyük Havayolu Obstrüksiyonu, Bronkoskopi

## A Case with Tracheobronchopathia Osteochondroplastica Presenting Upper Airway Obstruction

### ABSTRACT

Tracheobronchopathia Osteochondroplastica (TO) is a rare, slowly progressive benign condition characterized by the presence of bony and cartilaginous nodules in the tracheal and bronchial submucosa. 65 years old man attending to chest disease polyclinic with chest pain and upper airway obstruction in his spirometry was diagnosed as TO according to thorax CT and fiberoptic bronchoscopy findings. We have presented herein a rare but benign condition sometimes leading to upper airway obstruction and to emphasize the importance of flow-volume loop in follow up of patient.

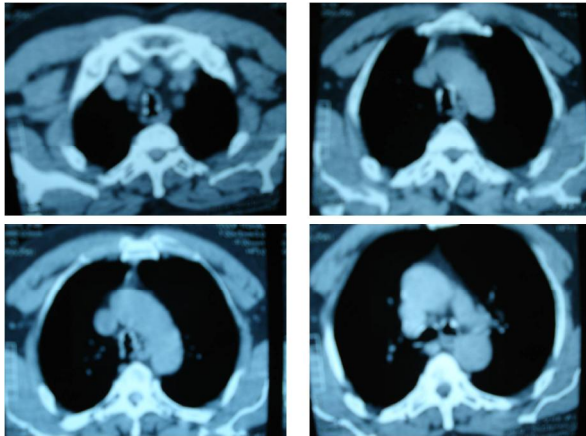
**Keywords:** Tracheobronchopathia Osteochondroplastica, Tracheopathia Osteoplastica, Large Airway Obstruction, Bronchoscopy

## GİRİŞ

Trakeobronkopati Osteokondroplastika (TO) etyolojisi bilinmeyen nadir bir hastalıktır. İlk kez Wilks tarafından, 1857 yılında tüberküloz nedeni ile ölen hastanın otopsisinde tanımlanmıştır. Trakea ve ana bronşlarda submukozal yerleşimli çok sayıda kemik ve kıkırdak dokusu içeren nodüllerle karakterizedir. Benign özelliktedir ve spesifik bir semptom vermez (1-4). Pulmoner patolojilerin değerlendirilmesi için yapılan Tomografi ve Bronkoskopi sırasında tesadüfen tanı konur. Bizim olgumuzda göğüs ağrısı etyolojisi araştırılırken tanı konmuştur.

## OLGU

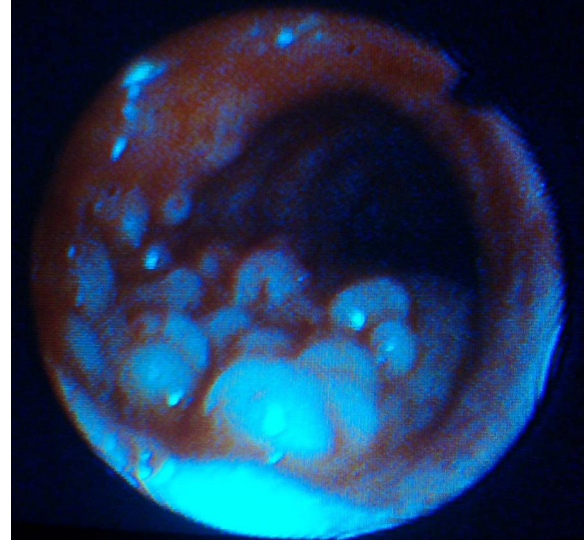
65 Yaşında erkek hasta göğüs ağrısı şikayeti ile polikliniğimize başvurdu. Sigara öyküsü olmayan hastanın 3-4 gündür süren retrosternal ağrı ve gastroözefagial reflü yakınması mevcuttu. Özgeçmişinde septum deviasyonu operasyonu ve hipertansiyon vardı. PA akciğer grafisinde sol hiler dolgunluk mevcuttu. Hastanın vital bulguları ve tüm sistem muayeneleri doğaldı. Tam kan, rutin biyokimya ve sedimantasyon hızı normal sınırlarda idi. Solunum fonksiyon testinde: FVC:%89 (3760 ml), FEV<sub>1</sub>:%93 (2920 ml), FEV<sub>1</sub>/FVC:%78 saptandı.



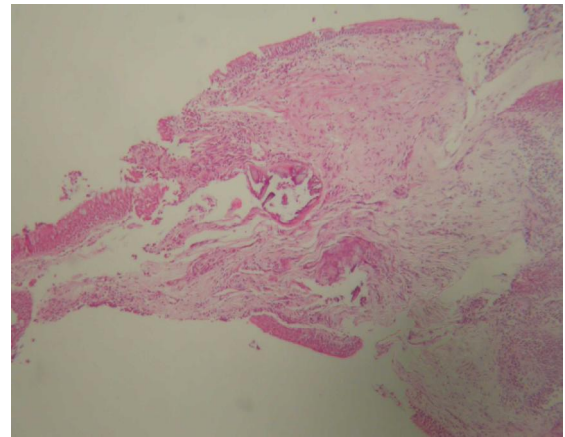
**Resim 1.** Bilgisayarlı toraks tomografisi; trakea ve sol ana bronş duvarı nodüler kalsifikasyon gösteriyordu.

Akım volüm halkası ekstratorasik havayolu obstrüksiyonu ile uyumlu bulundu. Toraks BT'de trakeada, tiroid glandı seviyesinden başlayıp sol ana bronş proksimalinde devam eden lümen düzensizliği ve lümene uzanım gösteren milimetrik boyutlarda hiperdens nodüler görünüm izlendi (**Resim 1**).

Hastanın bronkoskopik incelemesinde kord vokallerden 4-5 cm sonra başlayan tüm trakeayı tutan özellikle lateral duvarlarda, lümen içine uzanan, trakea orta hattında lümeni %50 daraltan çok sayıda 3-5 mm çaplı sert tipik beyaz nodüller görüldü (**Resim 2**).



**Resim 2.** Fiberoptik bronkoskopik incelemede; tüm trakeayı tutan, çok sayıda 3-5 mm çaplı, sert, beyaz nodüllerin tipik olarak posterior membranöz kısmı (siyah ok) etkilemediği görüldü.



**Resim 3.** Patolojik bulguları normal mukoza altında kalsifikasyon odakları TO ile uyumlu olarak raporlandı.

Ana karina ve posterior membranöz kısım korunmuştu. Bu nodüler yapı sol ana bronş içine doğru lateralden kısmen uzanım göstermekte idi. Nodüller biyopsi forsepsi ile tutulduğunda sert ve kopmaya karşı dirençli olduğu görüldü. Bronkoskopik biyopsi materyalinin patolojik incelemesinde respiratuar epitelyum altında kalsifikasyon odakları TO ile uyumlu olarak rapor edildi

**(Resim 3).** Trakeal lümeninde %50 daralma olan olgumuz gerekirse invaziv müdahale açısından değerlendirilmek üzere Akım-volüm eğrisi ile takibe alındı.

### TARTIŞMA

Trakeobronkopati Osteokondroplastika (TO) etyolojisi bilinmeyen nadir bir hastalıktır. Kronik inflamatuvar süreçler ya da dejenerasyon, ozon, kimyasallarla indüklenen dejenerasyon, sifiliz gibi birçok değişik neden etyolojide suçlanmaktadır (3-5). Kıkırdak trakeada encondrozis ve ekzostozis, konnektif dokuda metaplazi veya alt solunum yollarının primer lokalize amiloidozisinin ileri derecede kalsifikasyona uğraması gibi pek çok değişik hipotez öne atılmıştır (6). Ailesel özellik bulunabileceğine dair bir yayın mevcuttur (7). Çok sayıda olgu tekrarlayan solunum yolu enfeksiyonları ile ilişkilendirilmiştir (8-10). Kronik inflamasyon zemininde kemik morfogenetik protein 2 (BMP-2) ve transforming growth factor beta (TGF- $\beta$ 1) gibi kemik oluşumu indükleyicilerinin sinerjik etki gösterdiği öne sürülmüştür (11). Bizim olgumuzda saptanan gastroözefagial reflüye bağlı tekrarlayan mikroaspirasyonlara sekonder olası kronik trakeal inflamasyonun etyolojiden sorumlu olabileceği düşünüldü. Bronkoskopinin tanı amaçlı yaygın olarak kullanılmaya başlaması ile birlikte görülme sıklığı artmıştır. Çoğu olgu asemptomatiktir. Bu nedenle gerçek insidans bilinmemektedir. Sekiz yıllık prospektif 2180 kişiyi kapsayan çalışmada dokuz olgu saptanmıştır (12). Başka bir çalışmada 20 bin bronkoskopide dört olguda tespit edilmiş (13). Mayo Clinic'te 1/772 vaka olarak saptanmıştır (14). Bir literatür taramasında, 1993 yılına kadar 371 olgunun yayımlandığı saptanmıştır (13). Ülkemizde Süreyyapaşa Göğüs Hastalıkları ve Göğüs Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesinde yapılan 20 binin üzerinde bronkoskopide üç olgu bildirilmiştir (5,15,16).

İzmir Dr. Suat Seren Göğüs Hastalıkları ve Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesinde ise 1984–2006 yılları arasında 30 binin üzerinde yapılan bronkoskopide beş olgu bildirilmiştir (17,18). Sunulan olgu merkezimizde 1999–2009 yılları arasında yapılan 1213 bronkoskopide karşılaştığımız 2. olgudur (19).

Trakeadaki nodüller genellikle lateral ve anterior duvarda olup posterior membranöz kısım ve üzerindeki epitel normaldir. Epitelde metaplazi olabilir. Fizik muayenede, genellikle ileri olgularda gelişen komplikasyonlar veya hastalığa özgü olmayan eşlik eden sekonder patolojilere ait bulgular mevcuttur (20). Rutin kan testleri ve akciğer grafisi çoğu zaman normaldir. Nodüller toraks BT'de saptanabilir. Olgumuzda sol ana bronş proksimalinde devam eden lümen düzensizliği ve lümen uzanım gösteren milimetrik boyutlarda hiperdens nodüler görünümüler tüm trakeada izlenmiştir. Bronkoskopide trakeabronşial ağaçta boncuk dizisi gibi beyaz kıkırdak veya kemiksi, üzeri normal mukoza ile kaplı nodüller saptanır ve tanı bronkoskopide nodüllerin görülmesi ile konur (7). Büyüyen ve birleşen nodüller bizim olgumuzda olduğu gibi obstrüksiyona neden olabilir (21,22). Akım-volum halkası hastalığın takibinde kullanılabilir (7). Olgumuzun 2 yıllık takibinde akım-volum eğrisinde progresyon izlenmedi. Ayırıcı tanıda amiloidoz, endobronşial sarkoidoz, kalsifik tüberküloz, papillomatozis, ve Wegener granülomatozisi gibi hastalıklar düşünülmelidir (23). Prognoz genellikle iyidir ve konservatif yaklaşım sergilenir. Tekrarlayan enfeksiyonlar antibiyotiklerle tedavi edilir. Medikal tedavinin yetersiz kaldığı durumlarda cerrahi tedaviler (trakeanın parsiyel rezeksiyonu, parsiyel larinjektomi, bronkoskopik müdahaleler) düşünülebilir (24). On olguluk bir seride, yalnız bir olguda stent uygulaması gerekmiştir (25).

## KAYNAKLAR

1. Kart L, Kiraz K, Büyükoğlan H ve ark. Tracheobronchopathia Osteochondro-plastica: İki olgu ve literatürün incelenmesi. *Tüberküloz ve Toraks Dergisi* 2004;52:268-271.
2. Way SPB. Tracheopathia Osteoplastica. *J Clin Path* 1967;20:814-820.
3. Hussain K, Gilbert S. Tracheopathia Osteochondroplastica *Clin Med Res* 2003;1:239-242.
4. Shih JY, Hsueh PR, Chang YL et al. Tracheal Botryomycosis in a patient with tracheopathia Osteochondroplastica. *Thorax* 1998;53:73-76.
5. Sevim T, Ataç G, Horzum G et al. Tracheobronchopathia osteochondro-plastica: A case report. *Turkish Respiratory Journal* 2002;3:72-75.
6. Akyol MU, Martin AA, Dhurandhar N, Miller RH. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica: A case report and a review of literature. *Ear Nose Throat J* 1993;72:347-350.
7. Prakash UB, McCullough AE, Edell ES, Nienhuis DM. Tracheopathia osteoplastica: Familial occurrence. *Mayo Clin Proc* 1989;64:1091-1096.
8. Leske V, Lazor R, Coetmeur D et al. Tracheobronchopathia Osteochondro-plastica: a study of 41 patients. *Medicine (Baltimore)* 2001;80:378-390.
9. Celik G, Kumbasar OO, Ulger F et al. Tracheobronchopathia Osteochondro-plastica. *Toraks Dergisi* 2002;3:200-203.
10. Hiroaki O, Hiroshi I, Yuka A et al. Tracheobronchopathia Osteochondro-plastica associated with sinobronchial syndrome. *Inter Med* 2009;48:579-580.
11. Tajima K, Yamakawa M, Katagiri T, Sasak H. Immunohistochemical detection of bone morphogenetic protein-2 and transforming growth factor beta-1 in tracheopathia osteochondroplastica. *Virchows Arch* 1997;431:359-363.
12. Van Nierop MA, Wagenaar SS, van den Bosch JMM, Westermann CJ. Tracheobronchopathia osteochondro-plastica. *Eur J Respir Dis* 1983;64:129-133
13. Mathlouthi A, BenRehouma C, BenM'Rad S et al. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: Personel observation and review of literature. *Rev Pneumol Clin* 1993;49:156-162.
14. Prakash UBS. Uncommon causes of cough. ACCP evidence-based clinical practice guidelines. *Chest* 2006;129:206-219.
15. Baran A, Göngör S, Ünver E, Yılmaz A. Trakeobronkopatia osteokondroplastika. Bir olgu nedeniyle. *Tüberküloz ve Toraks Dergisi* 2004;52:183-185.
16. Karagöz T, Basozdemir N. Trakeobronkopatia osteokondroplastika. *Endoskopi Dergisi* 1990;2:21-29.
17. Tatar D, Karakurum Ç, Çırak K et al. Trakeobronkopatia osteokondroplastika (İki olgu). *Solunum Hastalıkları* 2006;17:186-190.
18. Polat G, Büyüksirin M, Ünalmiş D, Kalenci S, Yücel N, Tibet G. Trakeobronkopati osteokondroplastika: Olgu sunumu. *İzmir Göğüs Hastanesi Dergisi* 2006;10 (3):79-82.
19. Annakkaya AN, Balbay Ö, Bilgin C, Arbak P, Bulut İ. Akciğer tüberkülozunun eşlik ettiği Trakeobronkopatia osteokondroplastika olgusu. *Akciğer Arşivi* 2006;7:66-68.
20. Karlikaya C, Yuksel M, Kilicli S, Candan L. Tracheobronchopathia Osteochondro-plastica. *Respirology* 2000;5(4):377-80
21. Barthwal MS, Chatterji RS, Metha A. Tracheobronchopathia Osteochondro-plastica. *Indian J Chest Dis Allied Sci* 2004;46:43-46.
22. Gürsu S, Tarcan O, Küpeli E, Bulut Ş. Açık kalp ameliyatı sonrası beklenmedik bir atelektazi olgusu Trakeobronkopati osteokondroplastika. *Yeni Tıp Dergisi* 2008;25:43-45.
23. Meyer CN, Dossing M, Broholm H. Tracheobronchopathia osteochondro-plastica. *Respir Med* 1997;91:499-502.
24. Kutlu CA, Yeginsu A, Ozalp T, Baran R. Modified slide tracheoplasty fort he manegement of Tracheobronchopathia Osteochondroplastica. *Eur J Cardiothorac Surg* 2002;21-42.
25. Jabbardarjani HR, Radpey B, Kharabian S, Masjedi MR. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica: presentation of ten cases and review of the literature. *Lung*. 2008;186:293-297.