Dendriform Pulmoner Ossifikasyon: Olgu Sunumu

Dendriform Pulmonary Ossification: A Case Report

Elif OCAK GEDİK¹ , Hakan KESKİN² , Ahmet Gökhan ARSLAN³ , İrem Hicran ÖZBUDAK¹

¹ Akdeniz Üniversitesi Tıp Fakültesi, Tıbbi Patoloji Anabilim Dalı, ANTALYA

² Akdeniz Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Cerrahisi Anabilim Dalı, ANTALYA

³ Akdeniz Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji Anabilim Dalı, ANTALYA

ÖZET

Amaç: Diffüz pulmoner ossifikasyon, akciğer parankiminde metaplastik ossifikasyon ile karakterize, nadir görülen kronik progresif bir hastalıktır. Nodüler ve dendriform olmak üzere iki formu vardır.

Olgu: Olgumuz 73 yaşında, erkek hasta olup nefes darlığı şikayeti ile başvurmuştur. Toraks bilgisayarlı tomografide bilateral alt loblarda, solda daha belirgin olan mikronodüller saptanmıştır. Malignite şüphesi nedeniyle olguya sol akciğer alt lob kama rezeksiyon uygulanmıştır. Histopatolojik incelemede akciğer parankimini infiltrate etmiş, dallanan, düzensiz, silindirik tübüller şeklinde yassı kemik yapıları, bu kemik yapıları içinde bazı alanlarda kemik iliği mesafesi ve yer yer kemik spiküllerini çevreleyen fibrozis alanları izlenmiş ve olgu 'Dendriform pulmoner ossifikasyon' olarak raporlanmıştır.

Sonuç: Dendriform pulmoner ossifikasyon, genellikle cerrahi spesmenlerde ya da postmortem teşhis edilen, akciğer parankimini infiltrate eden kemik doku ile karakterize nadir bir durum olup özellikle alt loblarda izlenen multiple nodüller nedeniyle malignite şüpheli olguların ayırıcı tanısında akılda tutulmalıdır.

Anahtar Sözcükler: Pulmoner, Ossifikasyon, Dendriform

ABSTRACT

Aim: Diffuse pulmonary ossification is a rare chronic progressive disease characterized by metaplastic ossification in the lung parenchyma. There are two forms, nodular and dendriform.

Case: Our case was a 73-year-old male patient who presented with dyspnea. Thorax computed tomography revealed bilateral micronodules in lower lobes which are more prominent on the left side. The patient underwent left lower lobe wedge resection for suspected malignancy. In histopathological examination, branching, irregular, cylindrical tubules of bone structures infiltrating the lung parenchyma which are usually containing bone marrow and fibrotic areas surrounding these bone spicules were observed. Therefore the case was diagnosed as 'Dendriform pulmonary ossification'.

Conclusion: Dendriform pulmonary ossification is a rare condition, usually diagnosed in surgical specimens or postmortem examination, which is characterized by bone tissue infiltrating the lung parenchyma. In conclusion, the pathologist should keep in mind in the differential diagnosis of suspected malignancy particularly due to multiple nodules in the lower lobes.

Key Words: Pulmonary, Ossification, Dendriform

GİRİŞ

Diffüz pulmoner ossifikasyon, akciğer parankiminde metaplastik ossifikasyon ile karakterize, nadir görülen kronik progresif bir hastalıktır (1-5). Belirgin restriksiyon izlenmediği için hastalar sıklıkla asemptomatiktir, nadiren kronik öksürük görülebilir. Bu nedenle daha sık olarak otopsi serilerinde ya da cerrahi materyallerde tanımlanmıştır (4). Bir otopsi seri-

sinde sıklığı 1.63/1000 olarak bildirilmiştir (6). Orta-ileri yaş erkeklerde daha sıktır (4).

Diffüz pulmoner ossifikasyonun nodüler ve dendriform olmak üzere iki formu vardır. Nodüler pulmoner ossifikasyon, sıklıkla pulmoner konjesyona neden olan mitral kapak hastalığı ya da sol ventrikül disfonksiyonu gibi kardiyak hastalıklara bağlı olarak görülür (4,6,7). Tipik olarak alt loblarda intraalveoler

alanlarda, alveolleri genişleten matür ve lobüle görünümde ossifikasyon izlenir (1). Dendriform pulmoner ossifikasyon, nodüler paternden daha nadir görülür (3). Kronik inflamasyona sekonder (idiyopatik pulmoner fibrozis, akut solunum sıkıntısı sendromu, kriptojenik organize pnömoni, organize pnömoni, asbestozis, ağır metal pnömokonyozu gibi) ya da daha nadiren idiyopatik görülür (5,6). Özellikle alveoler septumda olmak üzere intraalveoler de olabilen dendritik, dallanan görünümde ossifikasyon izlenir (3). Genellikle sınırlı osteoblastik ve osteoklastik aktivite vardır. İlik mesafesi ve kan elemanları görülebilir (5).

Radyolojik olarak, düzenli dikotom dallanma dizileri başlangıçta subplevraldır ve kalsifik dansite genellikle pulmoner fibrozis, bronşektazi veya her ikisi olarak yorumlanır (8). Dendriform pulmoner ossifikasyon, Luschka tarafından 1856'da tanımlandığından beri 100'den az olgu raporlanmıştır (4,9).

OLGU SUNUMU

Olgumuz 73 yaşında erkek hastadır. Bir aydır devam eden ve son bir haftadır artış olan nefes darlığı şikayeti ile dış merkezde tetkik edilmiş, sol taraf masif plevral efüzyon varlığı ve sol akciğer alt lobda izlenen konsolidasyon nedeniyle merkezimize refere edilmiştir. Özgeçmişinde diyabet, hipertansiyon ve ritim bozukluğu vardır. Fizik muayenesinde sol akciğer alt ve orta zonlarda solunum seslerinde azalma tespit edilmiştir. Toraks bilgisayarlı tomografisinde, sol hemitoraksta 5 cm plevral efüzyon ve her iki akciğer alt lobda, solda daha belirgin olmak üzere bilateral mikronodüller saptanmıştır (Şekil 1). Malignite ön tanısı nedeniyle olguya posterolateral torakotomi ile sol akciğer alt lob kama rezeksiyonu uygulanmıştır.

Şekil 1: Koronal kesit BT görüntüsünde, sol plevral efüzyon ve ateletatik sol alt lobda dallanan kalsifik dansiteler görülmektedir.

Makroskobik olarak 13x7x3 cm boyutlarında olan kama rezeksiyon materyalinin kesit yüzünde bronş lümenlerine uyan alanlarda, yaygın, sert kıvamda yapılar izlenmiştir (Şekil 2). Ayrıca parankim diğer alanlarda özellikle subplevral mesafede distal asiner amfizem dikkati çekmiştir. Plevra yüzeyinde makroskobik olarak patolojik bulgu izlenmemiştir.

Histopatolojik kesitlerde akciğer parankimini infiltrate etmiş, dallanan, düzensiz, silindirik tübüller şeklinde yassı kemik yapıları görülmüştür (Şekil 3). Ayrıca bu kemik yapıları içinde bazı alanlarda kemik iliği mesafesi ve yer yer kemik spiküllerini çevreleyen fibrozis alanları da izlenmiştir (Şekil 4). Zeminde fokal intertisyel fibrozis dışında patolojik bulgu saptanmamıştır. Olgu amiloid birikimi açısından da değerlendirilmiş olup, amiloid lehine bulgu izlenmemiştir.

TARTIŞMA

Pulmoner kalsifikasyonlar ve ossifikasyonlar, toraks görüntülemesinde de oldukça sık görülen, histopatolojik olarak rezeksiyon materyallerinde de sık karşılaştığımız durumlardır. Bunların en sık nedenleri Tablo 1'de verilmiştir (Tablo 1) (3).

Pulmoner ossifikasyon, kardiyak hastalıklar, primer pulmoner hastalıklara bağlı olabilmekle birlikte idiyopatik olarak da görülebilir. Diffüz pulmoner ossifikasyonun nodüler ve dendriform olmak üzere iki alt tipi vardır. Bunlardan nodüler pulmoner ossifikasyon mitral kapak darlığı ve sol ventrikül fonksiyon bozukluğu gibi kardiyak hastalıklar, dendriform pulmoner ossifikasyon da kronik pulmoner hastalıklarla ilişkili olarak görülmüştür (1,4,6,7,9). Bu nedenlerden bağımsız olarak nadir olgularda idiyopatik olarak da görülebilir.

Şekil 2: Sol akciğer alt lob rezeksiyon materyali, kesit yüzünde bronş lümenlerine uyan alanlarda sert materyal izleniyor.

Şekil 3: Akciğer parankimini infiltre etmiş, dallanan, düzensiz tübüller şeklinde yassı kemik yapıları ve bu yapılar içinde kemik iliği mesafesi (x40, H&E).

Şekil 4: Akciğer parankimini infiltre etmiş yassı kemik yapısı (x100, H&E).

Tablo I: Pulmoner kalsifikasyon ve ossifikasyonlarının ayırıcı tanısı.

1. Kalsifikasyonlar

- Distrofik kalsifikasyon

- A. Enfeksiyonlar (histoplazmozis, tüberküloz, varisella)
- B. Granümatöz non-enfeksiyöz hastalıklar (sarkoidoz)
- C. Mesleki pulmoner hastalıklar (silikozis, kömür işçisi pnömokonyozu)
- D. Metabolik pulmoner hastalıklar (amiloidoz, pulmoner alveoler mikrolityazis)
- E. Pulmoner vasküler nedenler (pulmoner hipertansiyon, arteriyovenöz malformasyon)
- F. Radyoterapi sonrası

- Metastatik kalsifikasyon

- A. Benign nedenler (kronik böbrek yetmezliği, prime hiperparatiroidizm, yüksek doz kalsiyum tedavisi, Paget hastalığı)
- B. Maligniteler (paratiroid karsinomu, multiple myelom, lösemi/lenfoma)

2. Ossifikasyonlar

- Nodüler pulmoner ossifikasyon
- Dendriform pulmoner ossifikasyon
- Kemik üreten maligniteler

Hastaların bazıları asemptomatik olup, rastlantısal olarak görüntülemede ya da histopatolojik incelemede pulmoner ossifikasyon saptanabilir. Bir kısım hasta ise intertisyel akciğer hastalığı, sarkoidoz gibi inflamatuvar hastalıklar, vaskülitler, tüberküloz ve histoplazmozis gibi enfeksiyonlar, enfarktüs ya da hemoraji gibi vasküler hastalıklar, primer ya da sekonder maligniteler, amiloidoz ve pnömokonyoz gibi yanlış tanımlar alabilir.

Yapılan retrospektif çalışmalarda toplamda 42 dendriform pulmoner ossifikasyon olgusu saptanmıştır. Bu olguların kadın:erkek oranı yaklaşık 1:6'dır. Ortalama görülme yaşı ise 64±17'dir. Olguların 20'si otopsi, 19'u cerrahi eksizyon, 3'ü

de radyolojik bulgularla tanı almıştır (6). Bizim olgumuzda da radyolojik bulgularla beraber malignite ön tanısı olması nedeniyle cerrahi eksizyon yapılmıştır.

Nodüler pulmoner ossifikasyon esas olarak alveoler boşluklarında, kronik hava boşluğu hemosiderozisi ve organize pnömoni alanlarında izlenir ve ilik mesafesi görülmez (5). Radyolojik olarak alt lob ağırlıklı küçük sentrolobüler nodüller şeklindedir.

Dendriform pulmoner ossifikasyonda radyolojik olarak periferik intertisyumda (interlobüler septa, subplevral ve perifissüral alanlar) dallanma yapan nodüller izlenir. Belirgin

lobüler distorsiyon, traksiyon bronşiektazisi ve bal peteği görünümü yoktur (8). Bizim olgumuzda da toraks bilgisayarlı tomografide her iki akciğer alt loblarda mikronodüller görülmüştür.

Sekonder dendriform pulmoner ossifikasyonda, akciğer parankim hasarının ossifikasyon ile ilişkisi, sitokinler, büyüme hormonları ve pulmoner mikroçevrenin etkisi ile iç içedir. Usual interstisyel pnömoni, obstrüktif akciğer hastalığı, pulmoner hipertansiyon, alveoler hasar, asbestozis, geçirilmiş tüberküloz enfeksiyonu ilişkili bulunan patolojilerdir (1).

Tanı amacıyla daha az invaziv olan bronkoskopi ile transbronşial biyopsi yapılması önerilmektedir. Ancak malignitenin dışlanması şarttır. Bizim olgumuzda da malignite şüphesi olduğu için sol alt lob kama rezeksiyon uygulanmıştır.

Dendriform pulmoner ossifikasyonun spesifik bir tedavisi yoktur. Öksürük, nefes darlığı gibi semptomlar için semptomatik tedavi önerilmektedir. Ayrıca görüntüleme yöntemleri ile takip de klinik olarak önerilmektedir (10).

İdiyopatik dendriform ossifikasyon etiyolojisi ile ilgili görüşler henüz tam olarak netleşmemiştir. Ancak dendriform pulmoner ossifikasyon altta yatan bir pulmoner hastalığı işaret edebildiğinden hastanın klinik öyküsü, radyolojik ve histopatolojik bulguları dikkatle değerlendirilmelidir.

Sonuç olarak dendriform pulmoner ossifikasyon nadir görülen ve genellikle otopside ya da cerrahi materyallerde tesadüfen tanı alan bir durumdur. Sıklıkla diğer akciğer hastalıklarıyla beraberdir. Olgumuz nadir olması ve diğer hastalıklarla birlikte izlenebilen bu antitenin tanınmasının önemini vurgulamak için sunulmuştur. Gelecekteki çalışmalar ve uzun vadedeki sonuçlar, dendriform pulmoner ossifikasyon konusunda daha iyi bir rehber olacaktır.

KAYNAKLAR

1. Carney JM, Mammarappallil JG, Sporn TA, Pavlisko EN. Dendriform pulmonary ossification leading to bilateral lung transplant: a case report. *Virchows Arch.* 2018;473(3):379-383.
2. Martinez JB, Ramos SG. Dendriform pulmonary ossification. *Lancet.* 2013;382(9904):22.
3. Jamjoom L, Meziane M, Renapurkar RD. Dendriform pulmonary ossification: report of two cases. *Indian J Radiol Imaging.* 2013;23(1):15-8.
4. Reddy TL, Von der Thüsen J, Walsh SL. Idiopathic dendriform pulmonary ossification. *J Thorac Imaging.* 2012;27(5):W108-10.
5. Lara JF, Catroppo JF, Kim DU, Costa D. Dendriform pulmonary ossification, a form of diffuse pulmonary ossification: report of a 26-year autopsy experience. *Arch Pathol Lab Med.* 2005;129(3):348-53.
6. Fernández-Bussy S, Labarca G, Pires Y, Díaz JC, Caviedes I. Dendriform pulmonary ossification. *Respir Care Clin N Am.* 2015;60(4):64-7.
7. Abe J, Oura H, Niikawa H, Yaegashi H, Kondo T. Dendriform pulmonary ossification: unusual cause of spontaneous pneumothorax. *Thorax.* 2014;69(1):97-8.
8. Gruden JF, Green DB, Legasto AC, Jensen EA, Panse PM. Dendriform pulmonary ossification in the absence of usual interstitial pneumonia: CT features and possible association with recurrent acid aspiration. *AJR Am J Roentgenol.* 2017;209(6):1209-15.
9. Jaderborg JM, Dunton RF. Rare clinical diagnosis of dendriform pulmonary ossification. *Ann Thorac Surg.* 2001;71(6):2009-11.
10. Duarte AADO, Nakatani J, Rigueiro MP, Saad T. Dendriform pulmonary ossification. *J Bras Pneumol.* 2006;32(3):270-3.