

Nükslerle Seyreden Spinal Kist Hidatikte Rehabilitasyon

Rehabilitation in Spinal Hydatid Disease with Recurrences: Case Report

Sibel ÖZBUDAK DEMİR,^a
Şule ŞAHİN ONAT,^a
Seda BİÇER,^a
Gülseren DOST,^b
Neşe ÖZGİRGİN^a

^aFizik Tedavi ve Rehabilitasyon Kliniği,
Ankara Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon
Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ankara,

^bFizik Tedavi ve Rehabilitasyon Kliniği,
Adıyaman Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
Adıyaman

Geliş Tarihi/Received: 15.07.2013
Kabul Tarihi/Accepted: 20.01.2014

Yazışma Adresi/Correspondence:
Şule ŞAHİN ONAT
Ankara Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon
Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon Kliniği,
Ankara,
TÜRKİYE/TURKEY
sahinsulester@gmail.com

ÖZET *Echinococcus granulosus*'un neden olduğu kist hidatik hastalığında kemik tutulumu nadir olmakla birlikte, %50'si de spinal tutulum olarak karşımıza çıkmaktadır. Klinikte sıklıkla parapleji, tetrapleji ya da radikülopati ile seyretmektedir. Spinal kist hidatik, cerrahi veya medikal yöntemlerle tedavi edilen bir hastalık olmakla beraber ortaya çıkan klinik tablo çoğu kez omurilik hasarı tablosudur ve mutlaka rehabilitasyon gerektirmektedir. Spinal tutulumunda nüks oranlarının oldukça yüksek olması rehabilitasyon programından elde edilen kazançların düşmesine neden olmaktadır. Bu da rehabilitasyon sürecinin olumsuz etkilenmesine yol açmaktadır. Bu olgu sunumunda, spinal kist hidatiği üç kez nüks eden, fonksiyonel durumu progresif olarak kötüleşen ve rehabilitasyon programı ile elde edilen kazancın kısıtlı olduğu bir olgu literatürde nadir görülen örneklerden olması nedeniyle sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler: Rehabilitasyon; nüks; ekinokokkozis

ABSTRACT Bone involvement of hydatid cyst disease caused by *Echinococcus granulosus* is rare which 50% represents as spinal involvement. Spinal hydatid disease often appears as paraplegia, tetraplegia or radiculopathy in clinical practice. Although spinal hydatid disease is treated surgically or medically, it often results as spinal cord injury in clinical practise and requires rehabilitation. Because of high recurrence rates in spinal involvement, gain from the rehabilitation program decreases. This situation leads to the negative effects of the rehabilitation process. In this report we presented a case which had three recurrence of spinal hydatid cyst, functional status deteriorated progressively, benefited less from the rehabilitation program and is one of the rare samples of the literature.

Key Words: Rehabilitation; recurrence; echinococcosis

Türkiye Klinikleri J Case Rep 2015;23(1):79-83

Kist hidatik, sestod grubundan bir parazit olan *Echinococcus granulosus*'un neden olduğu zoonoz bir hastalıktır.¹ Akdeniz, Ortadoğu, Latin Amerika ülkeleri gibi gelişmekte olan ve az gelişmiş ülkelerde sık olarak görülen hastalık için ülkemiz de endemik bölgelerdendir.² Kemik tutulumu çok nadir olup, tüm olguların yaklaşık %1-4'ünü oluşturmaktadır.^{3,4} Kemik tutulumu olan olguların yaklaşık %50'sinde ise spinal tutulum vardır.¹ Spinal tutulumunda nüks oranlarının oldukça yüksek olması, rehabilitasyon programından elde edilen kazançların düşmesine neden olmaktadır. Bu yazıda da spinal kist hidatiği üç kez nüks eden, fonksiyonel durumu progresif olarak kötüleşen ve rehabilitasyon programı ile elde edilen kazancın

kısıtlı olduğu bir olgu literatürde nadir görülen örneklerden olması nedeniyle sunulmuştur.

OLGU SUNUMU

Elli yaşında kadın hasta, her iki bacakta güçsüzlük ve yürüyememe şikâyetleriyle kliniğimize başvurdu. Hastaya 20 yıl önce paraparezi tablosunun gelişmesi üzerine spinal kist hidatik tanısı konulmuş ve kistektomi operasyonu yapılmıştı. Operasyondan sonra hastanın tekli denge bastonuyla cihazsız ambule olduğu öğrenildi. Operasyondan üç yıl sonrasında hastada sol akciğerde kist hidatik tespit edilmiş ve bundan sonraki 10 yıllık süreçte nükslerle birlikte altı defa torakal kistektomi operasyonu geçirmişti. Yedi yıl sonra hastada tekrar parapleji tablosu gelişmiş ve ikinci kez vertebradan kistektomi operasyonu olmuştu. Hasta yine bu operasyondan sonra da tekli denge bastonuyla cihazsız ambule olabiliyordu. Altı ay önce bacaklarda güçsüzlüğün artması şikâyetiyle hekime başvuran hastanın çekilen manyetik rezonans görüntülemesinde STIR sagittal kesitte paravertebral yumuşak dokuda içerisinde septasyonlar bulunan kistik kitle lezyonu (Resim 1), T2 ağırlıklı sagittal kesitte T11 vertebra korpusunda ekspansil destrüksiyona yol açan spinal kordu basılandırıcı yumuşak doku kitle lezyonu (Resim 2) ve T2 ağırlıklı aksiyal kesitte T11 vertebra korpusunda ekspansiyon oluşturan, spinal kanal içerisine uzanım gösteren kistik komponentleri bulunan yumuşak doku kitle lezyonu (Resim 3) saptanmış ve T11 seviyesinde kistektomi operasyonu yapılmıştı. Hasta 10 yıldır günde 800 mg albendazol kullanmaktaydı. Kliniğimize tekerlekli sandalye ile kabul edilen hastanın genel durumu iyi, bilinci açıktı. Hastanın nöromusküler sistem değerlendirmesinde baş-boyun ve bilateral üst ekstremitelerde muayeneleri normaldi. Yapılan muayenesinde alt ekstremitelerinde eklem hareket açıklıkları tamdı, kas tonusu azalmıştı. Bilateral patella ve aşil refleksleri alınmadı. Motor muayenesinde pelvik elevasyonu 1\5, abdominal kaslar ve tüm alt ekstremitelerde anahtar kasları 1\5 gücündeydi. Duyu muayenesinde L2 distalinde dermatomlarda hipostezisi vardı ve derin duyusu bozuktu. Patolojik refleksi bulunmamaktaydı. Mesane ve rektum hissi var, kontrolü yoktu. Anal muayenede yüze-



RESİM 1: Sagittal kesitte paravertebral yumuşak dokuda içerisinde septasyonlar bulunan kistik kitle lezyonu.



RESİM 2: T2 ağırlıklı sagittal kesitte T11 vertebra korpusunda ekspansil destrüksiyona yol açan spinal kordu basılandırıcı yumuşak doku kitle lezyonu.

yel anal duyusu olan hastanın, derin anal basınç duyusu ve istemli anal kontraksiyonu yoktu. Hasta bu bulgularla L2 Amerikan Spinal Kord Yaralanma Derneği (ASIA) Bozukluk Skalası (ABS) C parapleji kabul edildi (Şekil 1). Rehabilitasyon programına kabul edildiğindeki Fonksiyonel Ambulasyon Sınıflaması (FAS) skoru 0, Fonksiyonel Bağımsızlık



RESİM 3: T2 ağırlıklı aksiyal kesitte T11 vertebra korpusunda ekspansiyon oluşturan, spinal kanal içerisine uzanım gösteren kistik komponentleri bulunan yumuşak doku kitle lezyonu.

Ölçeği (FBÖ) skoru ise 76 idi. Rehabilitasyon programına “tilt-table” ile başlandı. “Tilt-table” programı sonrasında paralel barda diz-ayak- ayak bileği

ortezi (PKAFO) ile vertikalizasyon çalıştı. Eklem hareket açıklığı egzersizi, denge koordinasyon egzersizi ve postür eğitimi, kas reedükasyonuna yönelik güçlendirme egzersizi, solunum egzersizlerinden oluşan egzersiz programı uygulandı. Rehabilitasyon programı sonunda hasta L2 ABS C olarak, FAS skoru 0, FBÖ skoru 86 olarak, bir çift PKAFO ile paralel barda vertikalizasyon seviyesinde taburcu edildi.

TARTIŞMA

E. granulosus'un neden olduğu kist hidatik hastalığı en sık karaciğer (%60-70) ve akciğeri (%10-15) tutarken, kemik tutulumu (%1-4) çok nadirdir.³⁻⁵ Kemik tutulumu olduğunda ise en sık olarak vertebra tutulumu görülmektedir (%50).¹ Spinal tutulumunda ise %50 ile en sık dorsal, %20 lomber, %20 sakral ve %10 servikal tutulum görülmektedir.⁶ Türkiye’de tüm spinal kord sendromunun %3,8’inden spinal kist hidatik hastalığı sorumludur.⁷ Vertebral korpus echinococcusu, vertebral kemik iliği içinde sınırlı kaldıkça sessiz ve ağrısız

Hastanın Adı Soyadı _____ Tarih / Saat: _____

Formu Dolduran: Dr _____

ASIA AMERICAN SPINAL INJURY ASSOCIATION **ISCOS**

SPİNAL KORD YARALANMASINDA NÖROLOJİK SINIFLAMA İÇİN ULUSLARARASI STANDARTLAR

MOTOR ANAHTAR KASLAR (skorlarına arka sayfa'da)

	R	L	
C5	5	5	Dirsek fleksörleri
C6	5	5	El bileği ekstansörleri
C7	5	5	Dirsek ekstansörleri
C8	5	5	Parmak fleksörleri (orta parmak, distal falanx)
T1	5	5	Parmak abduktörleri (küçük parmak)

ÜST EKSTREMİTE TOPLAM (MAKSİMUM) 25 + 25 = 50

Yorumlar: _____

HAFİF DOKUNMA Sağ Sol **İĞNE BATIRMA** Sağ Sol

C2	2	2	2	2
C3	2	2	2	2
C4	2	2	2	2
C5	2	2	2	2
C6	2	2	2	2
C7	2	2	2	2
C8	2	2	2	2
T1	2	2	2	2
T2	2	2	2	2
T3	2	2	2	2
T4	2	2	2	2
T5	2	2	2	2
T6	2	2	2	2
T7	2	2	2	2
T8	2	2	2	2
T9	2	2	2	2
T10	2	2	2	2
T11	2	2	2	2
T12	2	2	2	2
L1	2	2	2	2
L2	2	2	2	2
L3	1	1	1	1
L4	1	1	1	1
L5	1	1	1	1
S1	1	1	1	1
S2	1	1	1	1
S3	1	1	1	1
S4-5	1	1	1	1

0 = kayıp
1 = besnek
2 = normal
TE test edilmiyor

DUYU ANAHTAR DUYU NOKTALARI

Avuç içi
El sırtı
El sırtı

Derin anal duyu (evet/hayır) Hayır

İĞNE BATIRMA SKORU (maks: 112) 98

HAFİF DOKUNMA SKORU (maks: 112) 98

NÖROLOJİK SEVİYE Sağ Sol

Normal fonksiyon gösteren en kaudal segment DUYU L2 L2

MOTOR L1 L1

TEK NÖROLOJİK SEVİYE L1

KOMPLET YA DA İNKOMPLET ? İnkomp. İnkomp. = S4-S5'te herhangi bir duyu veya motor fonksiyon

ASIA BOZUKLUK SKALASI (ABS) B

(Sadece komplek yaralanmalarda) **PARSİYEL KORUNMUŞ BÖLGE** Sağ Sol DUYU NA NA

MOTOR NA NA

Herhangi bir inervasyonu olan en kaudal seviye

ŞEKİL 1: Hastanın ASIA bozukluk skalası.

olarak seyretmekte ve olgu hastalığın ilerlemiş safhasında başvurmaktadır. İlk klinik semptom olarak radiküler ağrı karşımıza çıkmaktadır. Hastaların ¼ ile ½'si ise parapareziyle başvurmaktadır.⁸ Yine hasta ağrı ve kas gücü kaybının yanında, spinal korda ve/veya sinir köklerine bası sonucu duyu kusuru, nörojenik mesane ve barsak disfonksiyonları ile de gelebilmektedir.^{6,9} Bizim hastamızda motor ve duyu kusuru ile birlikte nörojenik mesane ve barsak tablosu bulunmaktaydı.

Spinal bölgede en sık torakal bölgede yerleşen hidatik kistte ekinokokkal embriyo vertebra korpuslarının intratrabeküler aralığı boyunca multiloküler büyüyerek tümör benzeri infiltrasyon ve hasara yol açmaktadır. Bunu pedikül ve lamina invazyonu izlemekte, zamanla kemik korteksi de aşarak çevre yumuşak dokulara ve komşu iskelet yapılarına yayılmaktadır.¹⁰ Spinal hidatik kistler Braitwade ve Less tarafından intrameduller, intradural ekstrameduller, ekstradural intraspinal, vertebral, paravertebral olarak beş sınıfa ayrılmıştır. En sık vertebral ve paravertebral kist hidatik görülmektedir.⁵ Bizim hastamızdaki spinal hidatik kistler torakolomber düzeyde paravertebral ve ekstradural-intraspinal yerleşimli olarak izlendi.

Spinal kist hidatiğin nüks oranları değişik serilerde farklılık göstermektedir. Bir çalışmada, spinal kist hidatiği olan 84 hastada bir hafta ile üç yıl arasında değişen izlem süresinde nüks oranı %18 bulunmuştur.¹¹ Herrera ve ark., spinal kist hidatiği olan 20 hastanın ortalama 4,8 yıllık takibinde nüks oranını %60 olarak belirtmişlerdir.¹² Bel ağrısı ve siyataljiyle gelen bir spinal kist hidatik olgusunda, cerrahi ve medikal tedaviyle (oral albendazol) tam kür sağlanmasının ardından sekiz yıl sonra oluşan parapleji tablosuyla rekürrens geliştiği bildirilmiştir.¹³ Yine bir olgu sunumunda, akciğer ve vertebral kist hidatikten opere olan 74 yaşındaki bir erkek hastanın operasyondan beş yıl sonra paraparezi ve sırtta ağırlı kitle ile nüks kist hidatik tanısı aldığı bildirilmiştir.¹⁴ Dokuz spinal kist hidatik olgusunun incelendiği prospektif bir çalışmada, cerrahi sonrasında bir hastada tam iyileşme görüldüğü ve rekürrensin görülmediği; yedi hastada zaman içinde nüks olduğu, bir hastanın ise 24 saat içinde kaybedildiği bildirilmiştir.¹⁵ Dört olguluk başka bir çalış-

mada da iki hastada nörolojik defisit olmadan, iki hastada da parapleji tablosu gelişerek nüks olduğu gözlenmiştir.¹⁶ Rekürrens olduğunda parapleji oranları %45'e yükselmektedir.¹⁷ Bizim olgumuzda da 20 yılda toplam 10 kere rekürrens gelişmesi bunlardan üçünün vertebrada nüks olması ilginçtir. Literatürde buna benzer bir olgu bulunmaktadır. Başka bir olguda da 20 yıl içinde altı kez rekürrensin olduğu, vertebral, kostal ve pulmoner tutulumun olduğu bildirilmiştir.¹⁸

Bu yüksek nüks oranlarında Spector ve ark.nın da belirttiği gibi çoğu spinal kist hidatik olgusu tekrarlayan ameliyatlara ihtiyaç duymaktadır.¹⁹ Bizim olgumuz da üç kere spinal kist hidatikten opere olmuştu. Govender ve ark., ameliyat edilen olgularda %50'ye varan oranlarda nüksle karşılaşıldığını ifade etmiştir.²⁰ Oysa ki hidatik kist tedavisinde altın standart rüptür oluşturmadan hidatik kistin total olarak cerrahi rezeksiyonudur ve nükslerin oluşumunu azaltmak için medikal tedaviye devam edilmesidir.⁸ Antihelmintik tedaviye bir ile altı ay arasında devam edilmesi önerilmektedir.²¹ Yine rekürrenslere karşı, albendazol ile praziquantel (50 mg/kg/gün) kombinasyonu da uygulanabilmektedir.²¹ Olgumuzda hastalık süresince uygulanan tüm cerrahi tedavilerden sonra antihelmintik tedaviler kullanılmasına rağmen nüksler devam etmiştir. Vertebral kist hidatikte, zayıf kemik penetrasyonu nedeniyle hastalığın medikal tedaviye de çok iyi yanıt vermediği bilinmektedir. Tüm bu olumsuzlukların ortak etkisi sonucunda hastamızın fonksiyonel durumu gittikçe kötüleşmiş ve rehabilitasyon potansiyeli azalmıştır. İlk iki spinal kist hidatik operasyonundan sonra gördüğü rehabilitasyon programlarından kazanımı fazla iken, en son rehabilitasyon programından çok fazla kazanç sağlayamamıştır.

Sonuç olarak spinal kist hidatik, cerrahi veya medikal yöntemlerle tedavi edilen bir hastalık olmakla beraber, ortaya çıkan klinik tablo çoğu kez omurilik hasarı tablosudur ve mutlaka rehabilitasyon gerektirmektedir. Spinal kist hidatiğin nüks oranlarının oldukça yüksek olması da rehabilitasyon programından elde edilen kazançların düşmesine neden olmaktadır. Bu şekilde nükslerle seyreden spinal kist hidatik olguları, rehabilitasyon süreçle-

rinde ve hastaların takibinde dikkatli olmayı gerektirmektedir. Yine ülkemizde hayvancılığın hayvan kesiminin bilimsel ilkeler ışığında, veteriner hekim kontrolünde yapılması, toplumun her türlü iletişim

yolları kullanılarak zoonozlar konusunda bilgilendirilmesi, koyun, köpek ve insan arasındaki bulaş yollarının mümkün olduğunca önlenmesi, hastalığa karşı alınacak en etkili tedbirlerdendir.

KAYNAKLAR

1. Sapkas GS, Machinis TG, Chloros GD, Fountas KN, Themistocleous GS, Vrettakos G. Spinal hydatid disease, a rare but existent pathological entity: case report and review of the literature. *South Med J* 2006;99(2):178-83.
2. Berk C, Ciftçi E, Erdoğan A. MRI in primary intraspinal extradural hydatid disease: case report. *Neuroradiology* 1998;40(6):390-2.
3. Karadereler S, Orakdögen M, Kiliç K, Özdoğan C. Primary spinal extradural hydatid cyst in a child: case report and review of the literature. *Eur Spine J* 2002;11(5):500-3.
4. Santavirta S, Valtonen M, Pättiälä H, Saarinen O, Konttinen YT. Disseminated hydatid disease causing paraplegia and destruction of the hip. *Arch Orthop Trauma Surg* 2000; 120(1-2):118-20.
5. Braithwaite PA, Lees RF. Vertebral hydatid disease: radiological assessment. *Radiology* 1981;140(3):763-6.
6. Charles RW, Govender S, Naidoo KS. Echinococcal infection of the spine with neural involvement. *Spine (Phila Pa 1976)* 1988; 13(1):47-9.
7. Çelik C, Şaşmaz FM, Uçan H. [Spinal hydatid cyst: Review]. *Türkiye Klinikleri J Med Sci* 2010;30(3):1073-7.
8. Sucu K, Zileli M. [Management of spinal infections]. Zileli M, Özer AF, editörler. Omurilik ve Omurga Cerrahisi. 2. Baskı. İzmir: Meta Basım; 2002. p.1145-73.
9. Karray S, Zlitni M, Fowles JV, Zouari O, Slimane N, Kassab MT, et al. Vertebral hydatidosis and paraplegia. *J Bone Joint Surg Br* 1990;72(1):84-8.
10. İplikçioğlu AC, Kökeş F, Bayar A, Doğanay S, Buharali Z. Spinal invasion of pulmonary hydatidosis: computed tomographic demonstration. *Neurosurgery* 1991;29(3):467-8.
11. Turgut M. Hydatid disease of the spine: a survey study from Turkey. *Infection* 1997;25(4): 221-6.
12. Herrera A, Martínez AA, Rodríguez J. Spinal hydatidosis. *Spine (Phila Pa 1976)* 2005; 30(21):2439-44.
13. Gouse M, Amritanand R, Venkatesh K, Sundararaj GD. Recurrent Echinococcal Infection of the Lumbar Spine: An 11 Year Follow-up. *Asian Spine J* 2013;7(1):39-43.
14. Belhassen-Garcia M, Carpio-Perez A, Blanco JF, Velasco-Tirado V, Pardo-Lledias J. Recurrent spinal echinococcosis. *Int J Infect Dis* 2011;15(6):e435-6.
15. Hamdan TA. Hydatid disease of the spine: a report on nine patients. *Int Orthop* 2012;36(2): 427-32.
16. Prabhakar MM, Acharya AJ, Modi DR, Jadav B. Spinal hydatid disease: a case series. *J Spinal Cord Med* 2005;28(5):426-31.
17. Schnepfer GD, Johnson WD. Recurrent spinal hydatidosis in North America. Case report and review of the literature. *Neurosurg Focus* 2004;17(6):E8.
18. Saracino A, Scotto G, Palumbo E, Cibelli D, Tartaglia A, Armillotta M, et al. Multiple recurrences of vertebral hydatidosis: a case report. *New Microbiol* 2005;28(3):271-5.
19. Spektor S, Gomori JM, Beni-Adani L, Constantini S. Spinal echinococcal cyst: treatment using computerized tomography-guided needle aspiration and hypertonic saline irrigation. Case report. *J Neurosurg* 1997;87(3):464-7.
20. Govender TS, Aslam M, Parbhoo A, Corr P. Hydatid disease of the spine. A long-term followup after surgical treatment. *Clin Orthop Relat Res* 2000;378:143-7.
21. Baykaner MK, Doğulu F, Öztürk G, Edali N, Tali T. A viable residual spinal hydatid cyst cured with albendazole. Case report. *J Neurosurg* 2000;93(1 Suppl):142-4.