

Akciğer Hamartomunun Cerrahi Tedavisi: 20 Olgunun Retrospektif Analizi

The Surgical Treatment of Hamartoma of the Lung: A Retrospective Analysis of 20 Cases

Dr. Hasan ÇAYLAK,^a
Dr. Kuthan KAVAKLI,^a
Dr. Sedat GÜRKÖK,^a
Dr. Alper GÖZÜBÜYÜK,^a
Dr. Orhan YÜCEL,^a
Dr. Ersin SAPMAZ,^a
Dr. Mehmet DAKAK,^a
Dr. Onur GENÇ^a

^aGöğüs Cerrahisi AD,
GATA, Ankara

Geliş Tarihi/Received: 25.10.2008
Kabul Tarihi/Accepted: 02.01.2009

Yazışma Adresi/Correspondence:
Dr. Kuthan KAVAKLI
GATA, Göğüs Cerrahisi AD,
Ankara,
TÜRKİYE/TURKEY
dr_kuthan_78@hotmail.com

ÖZET Amaç: Akciğer hamartomu benign akciğer tümörleri içerisinde en sık karşılaşılan tümördür. Çoğunlukla soliter pulmoner nodül olarak karşımıza çıkarlar. Bu çalışmanın amacı kliniğimizde cerrahi tedavi uygulanan akciğer hamartomlu olguların klinik, radyolojik ve patolojik özelliklerini incelemektir. **Gereç ve Yöntemler:** Kliniğimizde Ocak 2003-Aralık 2007 tarihleri arasında cerrahi tedavi uygulanan akciğer hamartomlu 20 olgu retrospektif olarak incelenmiştir. **Bulgular:** Akciğer hamartomu nedeniyle cerrahi rezeksiyon uygulanan 20 olgunun çoğu erkek (n= 19) olup yaş ortalaması 41.5 (20-60) olarak hesaplandı. Üç olgu dışında 17 olgu asemptomatikti. Bilgisayarlı toraks tomografisinde 15 lezyonda kalsifikasyon mevcuttu. Periferik yerleşimli 2 lezyona VATS aracılığıyla ve diğer 18 lezyona torakotomi aracılığıyla rezeksiyon uygulandığı belirlendi. Cerrahi mortaliteye rastlanmazken iki hastada üç komplikasyon saptandı. Ortalama 32 (5-65) ay olan takip süresince olgularda nüks veya herhangi bir pulmoner patoloji saptanmadı. **Sonuç:** Akciğer hamartomları çoğunlukla soliter pulmoner nodül olarak karşımıza çıkabilen benign akciğer tümörleridir. Radyolojik incelemelerde içerebildikleri kalsifikasyon veya yağ nedeniyle benign kriterler gösterebilirler de akciğer hamartomlarının kesin tanı ve tedavisi mümkün derecede akciğer parankiminin korunduğu, düşük mortalite ve morbidite oranları ile uygulanabilen cerrahi rezeksiyondur.

Anahtar Kelimeler: Hamartom, tümörler, akciğer, göğüs cerrahisi

ABSTRACT Objective: The most frequently seen tumor of the benign lung tumors is hamartoma. They are usually seen as a solitary pulmonary nodule. The purpose of this study is to investigate the clinic, radiologic and pathologic features of patients who were treated with surgery for pulmonary hamartomas. **Material and Methods:** Medical records of 20 patients who were treated with surgery between January 2003 and December 2007, were reviewed retrospectively. **Results:** A total of 20 patients who were treated with surgery was mostly consisted of men (n=19) and the mean age was calculated 41.5 (20-60) years. Seventeen patients were asymptomatic excluding three of them. The calcification was seen at computerized thorax tomography in 15 patients. Two of the lesions which situated periferally were resected via VATS and the other 18 lesions were resected via thoracotomy. No mortality was seen and three complications occurred in two patients. There were no recurrence and pulmonary disease in the 32-month follow-up period (range:5-65 months). **Conclusion:** The hamartomas of the lung are benign tumor that can be presented as solitary pulmonary nodule. Although, they can include calcification or fatty tissue in radiologic investigation as benign criteria, their final diagnosis and treatment is the surgical resection with low mortality and morbidity rate and with parenchyma saving as possible.

Key Words: Hamartoma, neoplasms, lung, thoracic surgery

Türkiye Klinikleri Arch Lung 2009;10(1):7-12

Hamartom akciğerin en sık görülen benign tümördür.¹ Benign akciğer tümörlerinin %77'sini ve tüm akciğer tümörlerinin ise %3'ünü akciğer hamartomu (AH) oluşturur.^{2,3} Genel popülasyon-

da görülme oranı otopsi serilerinde %0.025-%0.32 olarak bildirilmektedir.^{4,5} AH bronşun fibröz bağ dokusundan gelişirler ve çoğunlukla kıkırdak ve yağ dokusu içerirler. Bu nedenle önceleri fibroli-pokondroma olarak da adlandırılmışlardır. Tanıları genellikle rezeksiyon sonrası konur. Bu lezyonların %90'ı soliter periferik kitleler şeklindedir ve soliter pulmoner nodüllerin (SPN) %4'ünü oluştururlar.⁶ Çoğunlukla asemptomatikler ve tesadüfen saptanırlar. Çok nadir olarak endobronşial yerleşim gösterebilirler. Genellikle yavaş büyürler ve ikiye katlanma zamanları malign lezyonlardan daha uzundur. Erkeklerde iki kat daha fazla görülür. Tanı anında genellikle 3 cm'den küçük olup %10-30 oranında kalsifikasyon içerirler.²

AH ilgili gerek yerli ve gerekse yabancı literatürde sınırlı sayıda çalışma bulunmaktadır ve bunların çoğu olgu sunumu şeklindedir. Bu çalışmada cerrahi rezeksiyon uyguladığımız 20 AH olgunun klinik, radyolojik ve patolojik özelliklerini geriye dönük olarak inceleyerek bu verileri literatür bilgileri ile karşılaştırdık.

GEREÇ VE YÖNTEMLER

Kliniğimizde Ocak 2003-Aralık 2007 tarihleri arasında AH nedeniyle 20 hastaya cerrahi rezeksiyon uygulandı. Olgulara ait tıbbi kayıtlar geriye dönük olarak incelendi. Bu kayıtlardan olgulara ait yaş, cinsiyet, sigara kullanımı, klinik özellikler, lezyon büyüklüğü, lokalizasyon, kalsifikasyon ve yağ içeriği gibi radyolojik özellikler, uygulanan cerrahi prosedür, mortalite, morbidite ve takip sonuç parametreleri değerlendirilmeye alındı.

Tüm olguların genel anestezi altında çift lümenli endotrakeal entübasyon sonrası operasyona alındığı ve yine tüm olgularda rezeksiyon sonrası intraoperatif patolojik inceleme (frozen section) uygulandığı saptandı. Bir olgu hariç hastaların tamamında operasyon sonrası takip verilerine ulaşıldı.

BULGULAR

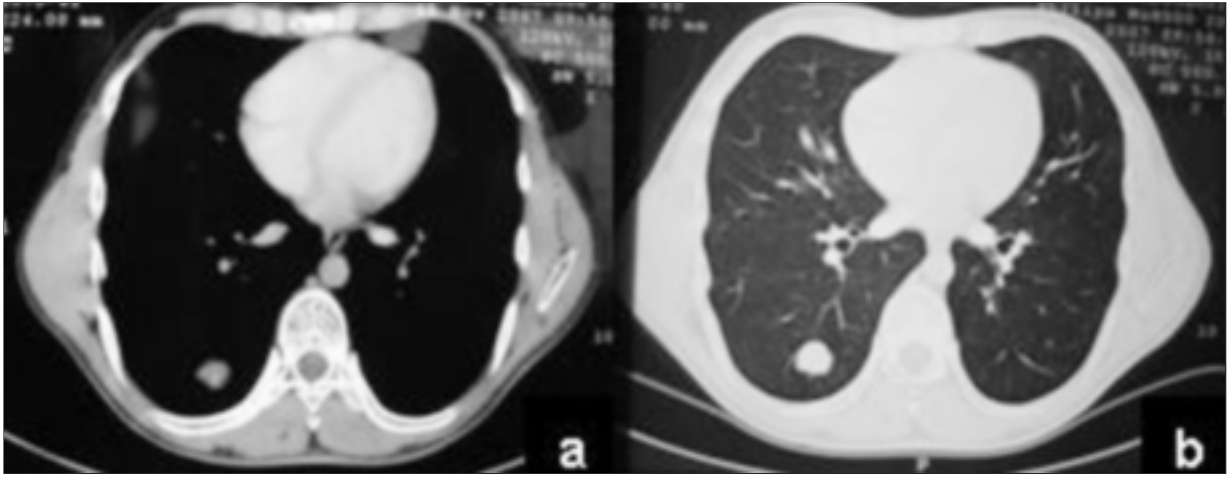
Cerrahi rezeksiyon uygulanan yirmi AH olgunun yaş ortalaması 41.5 (20-60) yıl olarak hesaplandı. Olguların %65'i (13) 40-60 yaş arasındaydı. Bir ba-

yan hasta hariç, olguların tamamı erkekti (K/E=1/19). On dört olguda sigara kullanımı mevcuttu ve bu olguların dokuzunda sigara tüketimi 20 paket/yıl üzerindedir.

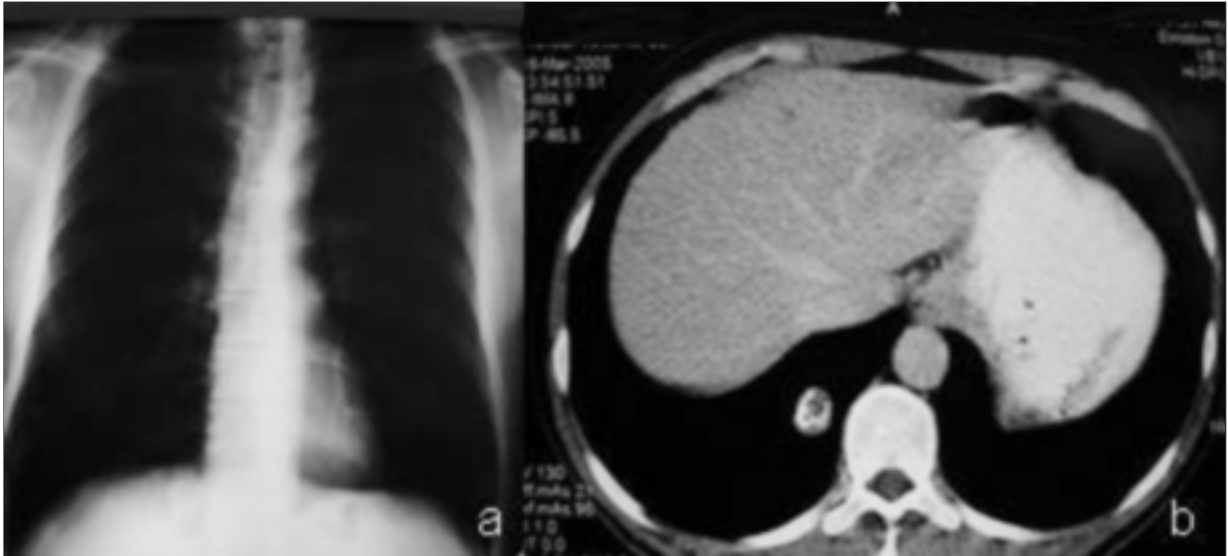
Klinik olarak tanı anında 17 (%85) olgu asemptomatik iken 3 (%15) olguda göğüs ağrısı, öksürük ve hemoptizi gibi pulmoner semptomlar saptandı. Asemptomatik olgularda pulmoner lezyon, başka nedenlerle yapılan radyolojik incelemeler esnasında tesadüfen belirlenmişti. İki olgunun anamnezinde malign tümör hikayesi mevcuttu. Bu olgular 3 ay önce larinks karsinomu ve 8 yıl önce renal hücreli karsinom nedeniyle ilgili kliniklerce cerrahi tedavi uygulanan ve periyodik takipte olan hastalardı. Benzer şekilde bir olguda bronşektazi ve bir olguda bilateral hiler bölgede kalsifik lezyon (Granülom) olmak üzere toplam 2 (%10) olguda eşlik eden pulmoner patolojiler mevcuttu.

Preoperatif olarak 2 (%10) olguya tanı amacıyla transtorasik iğne aspirasyon biyopsisi (TİAB) uygulandığı, işlem esnasında müdahale gerekmeyecek düzeyde (%5-10) pnömotoraks geliştiği ve bu iki olgudan alınan örneklerin yetersizliği nedeniyle histopatolojik tanı elde edilemediği saptandı. Diğer olgularda TİAB uygulanmamıştı.

Radyolojik verilerin incelenmesinde 20 lezyonun ortalama çapı 2.3 cm (1-6 cm) olarak hesaplandı. On beş (%75) lezyonda kalsifikasyon mevcuttu. Kalsifikasyonlar daha çok noktasal tarzdaydı ve sadece 5 (%25) lezyonda tipik patlamış mısır tarzında kalsifikasyon mevcuttu (Resim 1 a, b). Kalsifikasyon içeren bu 15 lezyondan sadece 2'sinin çapı 2 cm'den büyük iken kalsifikasyon içermeyen 5 lezyonun tamamını çapı 2 cm'den büyüktü. On altı lezyon direk akciğer grafisi ile görüntülenebilirken 4 lezyonun diyafragma veya kemik yapılar tarafından maskelendiği ve bu 4 lezyonda tanının tomografi tetkiki ile konulabildiği saptandı (Resim 2 a, b). Lokalizasyon olarak lezyonların büyük çoğunluğu (n= 17, 85%) periferik yerleşimliydi (Tablo 1). Onsekiz lezyonun standart posterolateral torakotomi aracılığı ile ve 2 lezyonun VATS aracılığıyla rezeke edildiği saptandı. Rezeksiyon şekli olarak hemen bütün olgularda enüklasyon veya wedge rezeksiyon uygulandığı,



RESİM 1: (a) Noktasal kalsifikasyon ve (b) tipik patlamış mısır tarzında kalsifikasyon gösteren iki farklı lezyona ait tomografi kesiti.



RESİM 2: (a) Direk akciğer grafisinde diyafragma tarafından maskelenen lezyon ve (b) aynı lezyona ait tomografi kesiti.

hiçbir olguda lobektomi veya pnömonektomi gibi anatomik rezeksiyona gerek duyulmadığı değerlendirildi (Tablo 2). İntraoperatif veya postoperatif dönemde mortalite mevcut değildi. Ancak iki olguda toplam 3 (%15) komplikasyon geliştiği saptandı. Bu komplikasyonlar; torakotomi hattında enfeksiyon, toraks tüpü çekimi sonrası %10'unu geçmeyen ekspansiyon kusuru (pnömotoraks) ve uzamış hava kaçağıydı.

Operasyon sonrası uzun dönem takip verilerine ulaşılabilen 19 olgunun 6 ay ile 5.5 yıl ara-

sında değişen sürelerde direk akciğer grafisi ile en az bir kez kontrol edildiği belirlendi. Tıbbi sorgusunda malignite öyküsü olan iki olgu ve diğer tüm olgular halen hayatta olup hiçbir olguda rekürrens veya başka bir akciğer patolojisi saptanmadı.

TARTIŞMA

AH en sık rastlanan benign akciğer tümörüdür ve bayanlara nazaran erkeklerde 2-4 kat daha sıktır. Büyük kısmı 40 ile 70 yaş arasında görülür.^{4,7} Çä-

TABLO 1: Hamartomların parankim içinde lokalizasyonları.

Yerleşim	Santral	Periferik	Toplam & %
Parankimal	3	6	9 (%45)
Subplevral	-	9	9 (%45)
Intraplevral mesafeye taşımış*	-	2	2 (%10)
Toplam & %	3 (%15)	17 (%85)	20 (%100)

* Bu iki olguda lezyonun bir kısmının intraplevral mesafeye protrüze olduğu saptandı.

TABLO 2: Hastalara uygulanan cerrahi girişim.

Cerrahi Girişim/Rezeksiyon	Torakotomi	VATS	Toplam & %
Kitle Rezeksiyonu*	11	-	11 (%55)
Wedge Rezeksiyon	7	2	9 (%45)
Toplam & %	18 (%90)	2 (%10)	20 (%100)

* Bu 11 olguda kitle parankimden enüklasyon yoluyla rezeke edilmiştir.

ışmamızda erkek kadın oranı 1/19 ve olguların %35' i (n= 7) 40 yaş altındaydı. Bu veriler literatür verileri ile çalışmakta olup sonuçlar çoğunlukla genç ve erkek hasta grubuna hizmet veren bir merkez olmamızın yansımaları olabilir.

Klinik olarak hamartomların çoğu asemptomatiktir. Semptom veren olgularda da belirti ve bulgular nonspesifik olduğundan tanıya götürücü özellik taşımaz. Nadir olarak intrabronşial yerleşim (%1.4) gösteren olgularda klinik daha belirgin olabilir ve mekanik obstrüksiyona bağlı olarak tekrarlayan akciğer enfeksiyonları veya atelettazi gelişebilir.^{4,8} Bu olguların cerrahi tedavisinde lobektomi veya pnömonektomi gibi anatomik rezeksiyonlar gerekli olabilir.

Çoğu lezyon asemptomatik olduğundan genellikle başka nedenlerle yapılan radyolojik incelemeler esnasında tesadüfen saptanırlar. Direk akciğer grafisi ve BT tetkiki bu lezyonlar hakkında oldukça faydalı bilgiler verir. Radyolojik incelemelerde AH büyük bir kısmı (%90) SPN olarak karşımıza çıkar.² Böyle bir lezyon saptandığında en önemli konu lezyonun benign veya malign olduğunun ayrımıdır. AH taşıdığı bazı radyolojik özellikler ile bu sorunun yanıtında yol göstericidir. Bu özelliklerden biri lezyonun yağ içeriği, diğeri ise

lezyondaki kalsifikasyondur. Hamartomların %50'sinde yağ içeriği saptanırken kalsifikasyon oranı %10-30 civarındadır. Yağ içeriği lezyonun hamartom olduğu yönünde güvenilir ve spesifik bir bulgu iken kalsifikasyon hamartoma spesifik bir bulgu değildir. Özellikle yurdumuzda yaygın olarak görülen tüberküloz başta olmak üzere granülatöz akciğer hastalıklarında ve hatta akciğer kanserlerinin bir kısmında da kalsifikasyona rastlanmaktadır. Akciğer kanserlerinde kalsifikasyon görülme oranı %6 olarak bildirilmektedir.^{2,9} AH her ne kadar bu radyolojik özellikleri nedeniyle benign kriterler gösterebilir de bu lezyonların kesin benign malign ayrımı rezeksiyon sonrası yapılabilmektedir.^{2,8} Çalışmamızda 4 (%20) lezyonda yağ içeriği ve 15 (%75) lezyonda kalsifikasyon mevcuttu. Kalsifikasyon çeşidi olarak hamartomların çoğunda rastlanan patlamış mısır tarzında veya difüz kalsifikasyonun tersine noktasal tarzda kalsifikasyon ön plandaydı.

AH lezyonun yoğun yapısı nedeniyle TİAB tanı için sıklıkla yetersizdir. Gerek fibrokartilagenöz yapıya sahip lezyondan tanı için yeterli materyal almadaki güçlükler ve gerekse histopatolojik bulguların yorumlanmasındaki güçlükler nedeniyle AH aspirasyon ile tanı doğruluğunun malign tümörlerden düşük olduğu gösterilmiştir.¹⁰⁻¹² Çalışmamızda TİAB esnasında pnömotoraks gelişen 2 olgu haricinde hiçbir olguya TİAB uygulanmamıştı. AH genellikle periferik yerleşimlidirler. Lezyonların %90'a varan oranda periferik yerleştiği bildirilmekte olup çalışmamızda 17 lezyonun (%85) periferik yerleşimli olduğu saptandı. Bu yerleşim özellikleri ve çoğunlukla küçük olmalarından dolayı VATS ile çıkarılmaya elverişli lezyonlardır. Preoperatif klinik ve radyolojik değerlendirmede ön tanı olarak lezyonun kuvvetle hamartom olduğu düşünülüyor ise öncelikle torakotomiye göre daha az invazif bir yöntem olan VATS ile rezeksiyon denenmeli başarısız olgularda torakotomiye geçilmelidir. Çalışmamızda periferik yerleşimli 17 (%85) lezyonun 2'si VATS ile rezeke edilmiştir.

AH çoğunun 3 cm'den küçük olması nedeniyle çeşitli sebeplerden dolayı çekilen direk akciğer grafilerinde diyafragma, kemik, kalp ve mediasten

gibi yapılara süperpoze olan lezyon gözden kaçabilmektedir. Çalışmamızda 20 olgunun 4'ünde (%20) lezyon bu yapılar tarafından maskelenmekteydi. Bu olguların direk akciğer grafilerinde tanı atlanmış ve lezyonun tespiti tomografi tetkiki ile mümkün olmuştur.

Sık olmamakla birlikte AH diğer bazı akciğer patolojileri de eşlik edebilmektedir. Lien ve ark. 61 olguluk serilerinde sadece bir olguda eşlik eden akciğer patolojisi bildirirken çalışmamızda iki olguda (%10) eşlik eden akciğer patolojisi mevcuttu.¹³ Bu patolojiler bir olguda bronşektazi ve diğer olguda granülom olup semptom saptanan 3 olgudan ikisini oluşturmaktaydı.

AH benign akciğer tümörleri olarak bilinmelerinin yanında başta akciğer kanseri olmak üzere diğer kanserlerle olan ilişkisi veya malign transformasyon gösterip göstermediği konusu halen belirsizliğini korumaktadır.¹⁴⁻¹⁶ Akciğer kanserinin yanında meme kanseri, testis teratosarkomu ve gastrointestinal sistem kanserlerinin hamartomlarla birlikteliği gösteren yayınlar bulunmaktadır.¹⁴ Çocuklarda nadir görülmekle beraber kistik mezankimal hamartomdan köken alan malign sarkomlu olgular ile rezeksiyon sonrası aynı yerden bronş kanserinin geliştiği veya rekürrens gösteren olgular da

rapor edilmiştir.^{8,17} Dahası, geniş serili bir araştırmada AH hastalarda bronşial karsinom gelişme riskinin 6.3 kat daha fazla olduğu ve aralarında etiyojik bir ilişkinin olabileceği vurgulanmaktadır.¹⁸ Bütün bunlara karşı olarak yine geniş serili başka bir araştırmada ise AH olguların %7'sinde bronşial karsinom tespit edilmesine rağmen bunun tamamen rastlantısal olduğunu vurgulanmaktadır.¹⁹ Sonuçta benign olarak kabul edilen bu lezyonların başta akciğer kanseri olmak üzere diğer malignitelerle birliktelik gösterebileceği veya cerrahi sonrası rekürrens gelişebileceği akılda bulundurulmalıdır. Bu açıdan bakıldığında olguların cerrahi sonrası takipleri önem kazanmaktadır. Çalışmamızda hiçbir olguda akciğer kanseri veya rekürrens saptanmadı. Ancak iki olgunun (%10) tıbbi sorgusunda malign tümör hikayesi bulunmaktaydı.

Sonuç olarak AH çoğunlukla soliter pulmoner nodül olarak karşımıza çıkarlar ve özellikle toraks tomografisinde yağ ve kalsifikasyon odakları içeren lezyon varlığında akılda bulundurulmalıdırlar. Bu lezyonların kesin tanısı ve aynı zamanda tedavisi düşük mortalite ve morbidite oranları ile uygulanabilen cerrahi rezeksiyon olup mümkün olduğunca akciğer parankimi korunmalı ve hastalar takibe alınmalıdır.

KAYNAKLAR

1. Oldham HN Jr, Young WG Jr, Sealy WC. Hamartoma of the lung. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 1967;53(5):735-42.
2. Shields TW, Robinson PG. Benign tumors of the lung. In: Shields TW, LoCicero RB, Ponn RB, Rusch VW, eds. *General Thoracic Surgery.* 6th ed. Philadelphia: Williams&Wilkins; 2005. p.1778-1800.
3. Schwartz M. A biomathematical approach to clinical tumor growth. *Cancer* 1961;14:1272-94.
4. Gjevre JA, Myers JL, Prakash UB. Pulmonary hamartomas. *Mayo Clin Proc* 1996;71(1):14-20.
5. Murray J, Kielkowski D, Leiman G. The prevalence and age distribution of peripheral pulmonary hamartomas in adult males. An autopsy-based study. *S Afr Med J* 1991;79(5):247-9.
6. Khouri NF, Meziane MA, Zerhouni EA, Fishman EK, Siegelman SS. The solitary pulmonary nodule. Assessment, diagnosis, and management. *Chest* 1987;91(1):128-33.
7. Koutras P, Urschel HC Jr, Paulson DL. Hamartoma of the lung. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1971;61(5):768-76.
8. Guo W, Zhao YP, Jiang YG, Wang RW, Ma Z. Surgical treatment and outcome of pulmonary hamartoma: a retrospective study of 20-year experience. *J Exp Clin Cancer Res* 2008;27:8.
9. Erasmus JJ, Connolly JE, McAdams HP, Roggli VL. Solitary pulmonary nodules: Part I. Morphologic evaluation for differentiation of benign and malignant lesions. *Radiographics* 2000;20(1):43-58.
10. Hamper UM, Khouri NF, Stitik FP, Siegelman SS. Pulmonary hamartoma: diagnosis by transthoracic needle-aspiration biopsy. *Radiology* 1985;155(1):15-8.
11. Hummel P, Cangiarella JF, Cohen JM, Yang G, Waisman J, Chhieng DC. Transthoracic fine-needle aspiration biopsy of pulmonary spindle cell and mesenchymal lesions: a study of 61 cases. *Cancer* 2001;93(3):187-98.
12. Acıcan T. [Percutaneous needle aspiration for staging and diagnosis of lung cancer]. *Türkiye Klinikleri J Med Sci* 1995;15(6):416-7.
13. Lien YC, Hsu HS, Li WY, Wu YC, Hsu WH, Wang LS, et al. Pulmonary hamartoma. *J Chin Med Assoc* 2004;67(1):21-6.
14. Ribet M, Jaillard-Thery S, Nuttens MC. Pulmonary hamartoma and malignancy. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1994;107(2):611-4.

15. Higashita R, Ichikawa S, Ban T, Suda Y, Hayashi K, Takeuchi Y. Coexistence of lung cancer and hamartoma. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg* 2001;49(4):258-60.
16. Okabayashi K, Hiratsuka M, Noda Y, Hanagiri T, Mitsudomi T, Shirakusa T, et al. Giant hamartoma of the lung with a high production of carbohydrate antigen 19-9. *Ann Thorac Surg* 1993;55(2):511-3.
17. Kato N, Endo Y, Tamura G, Motoyama T. Multiple pulmonary leiomyomatous hamartoma with secondary ossification. *Pathol Int* 1999;49(3):222-5.
18. Karasik A, Modan M, Jacob CO, Lieberman Y. Increased risk of lung cancer in patients with chondromatous hamartoma. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1980;80(2):217-20.
19. van den Bosch JM, Wagenaar SS, Corrin B, Elbers JR, Knaepen PJ, Westermann CJ. Mesenchymoma of the lung (so called hamartoma): a review of 154 parenchymal and endobronchial cases. *Thorax* 1987;42(10):790-3.