

# Osteomalaziye Sekonder Gelişen Bilateral Humerus Başı Avasküler Nekrozu Olgusu

## A CASE OF OSTEOMALACIA AND SECONDARY BILATERAL AVASCULAR NECROSIS OF THE HUMERAL HEAD

Alev AY\*, Elif YOLGÖSTEREN\*\*, Mahmut ASLAN\*\*, Merih YURTKURAN\*\*\*

\* Uz.Dr., UÜTF Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon AD, Atatürk Rehabilitasyon Uygulama ve Araştırma Merkezi Küçüközlü Kaplıcaları

\*\* Araş.Gör.Dr., UÜTF Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon AD, Atatürk Rehabilitasyon Uygulama ve Araştırma Merkezi Küçüközlü Kaplıcaları

\*\*\*Prof.Dr., UÜTF Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon AD, Atatürk Rehabilitasyon Uygulama ve Araştırma Merkezi Küçüközlü Kaplıcaları, BURSA

### Özet

Avasküler nekroz kliniğinin sebepleri içinde osteomalaziye de düşünmenin gereğini vurgulamaktır.

Burada, tutulum yeri itibarıyla (bilateral humerus başı ve ayak metatarsal bölge) ender görülen, osteomalaziye sekonder ileri evre bir avasküler nekroz olgusu takdim edilecektir.

Osteomalazi, oluşturduğu stres kırıkları nedeniyle, avasküler nekroza ve sekonder osteoartritik değişikliklere sebep olarak, tutulan eklemlerde hareket kısıtlılığı ve ağrı yapabilmektedir. Oluşan sekonder patoloji, bazen primer olayı maskeleyebilir, tanıyı geciktirebilmektedir.

**Anahtar Kelimeler:** Avasküler nekroz, Humerus başı, Osteomalazi

T Klin FTR 2004, 4:11-15

### Summary

The aim of the study is to point out the diagnosis of osteomalacia among the causes of avascular necrosis.

Here a case of bilateral high grade avascular necrosis with a rare involvement region (humeral head and metatarsal bones) due to osteomalacia will be submitted.

Because of the stress fractures, osteomalacia can cause pain and disability at the involved joints, following avascular necrosis and secondary osteoarthritic changes. Consequently, primary event is masked by the secondary disorder and the diagnosis could be delayed.

**Key Words:** Avascular necrosis, Humeral head, Osteomalacia

T Klin J PM&R 2004, 4:11-15

Osteomalazi; parathormon veya sirküle olan 25 hidroksi D vitamini (25-OHD) eksikliği ya da D vitaminine rezistans durumlarını içeren D vitamini metabolizma bozukluğu (metabolik veya gastrointestinal probleme bağlı) ve kusurlu iyonize kalsiyum transportu sonrası, kas-iskelet sisteminde ortaya çıkan ağrı ve yer değiştirmeyen kırıklarla (stres kırıkları) karakterizedir. Metabolik sendromu, çoğunlukla yetersiz güneş ışığına maruz kalma (özellikle kış aylarında ve kuzey enlem bölgelerinde), kapalı giyim, vitamin D'den fakir ve fitik asitten zengin diyet oluşturur (1).

Avasküler nekroz (osteonecrosis) ise, kemiğin hematopoetik yağlı iliği ve mineralize doku hücrelerinin ölümüdür. Spesifik bir hastalığı göstermeyip, çoğunlukla femur başı kanlanmasını bozan durumların sonucudur. Tutulan diğer bölgeler, distal femur, humerus başı ve dirsek ile ayağın küçük eklemleridir. ABD'de her yıl 15.000 yeni

olgu bildirilmektedir. Bunların %35'i steroid, %21.8'i alkol kullanımıyla ilişkili, %37'si de idiopattiktir. Etyolojideki diğer faktörler içinde; major ve minör travma, malignite, sickle cell hastalığı, diabetes mellitus, osteomalazi, yağ embolisi ve sistemik lupus eritematosus gibi patolojiler yer alır (2).

Burada, her iki humerus başında ve ayak metatarsal kemiklerinde bilateral osteomalaziye sekonder stres kırıkları olan, stres kırıklarına bağlı avasküler nekroz, avasküler nekroza bağlı da sekonder ileri osteoartritik değişiklikler sonucunda ağrı ve hareket kısıtlılığı yakınmasıyla gelen 71 yaşındaki bir kadın olgu takdim edilecektir.

### Olgu

Sol omuzunda bir aydan beri devam eden şiddetli ağrı şikayeti ile polikliniğimize başvuran 71 yaşındaki kadın hastanın mekanik karakterdeki

ağrısına son birkaç gündür istirahat ağrıları da eklenmişti. Hikayesinde major travma veya romatizmal patoloji yoktu. 3 yıl önce yine travma olmaksızın başlayan, hareket sonlarında ve sağda belirginleşen her iki omuz ağrısı ve eşlik eden aktif hareket kısıtlılığı olması nedeniyle başvurduğu polikliniğimizde, supraspinatus tendiniti öntanısı ile omuz grafileri çekilmiş, akromioklaviküler eklemden osteofitik dejeneratif değişiklikler ve humerus başında kistik değişiklikler saptanması üzerine omuz MR'ı istenmişti. Omuz MR'ında bilateral supraspinatus tendonunda tam yırtık, impingement sendromu ve solda biceps tendon rüptürü saptanmıştı. Ortopedi polikliniği tarafından da değerlendirilen hastaya operasyon önerilmemiş, bunun üzerine medikal tedavi ve egzersiz programı verilerek tarafımızdan takip edilmişti. Lokomotor sistem muayenesinde sol omuzda yaygın duyarlılık mevcuttu. Omuz hareketleri pasif olarak tamdı. Aktif olarak abduksiyon 120°, fleksiyon 135°, ekstansiyon 10° eksternal rotasyon 45°, internal rotasyon 30° ve hareketlerin son 40-60 derecesi ağrılıydı. Yergason testi ve ağırlı ark testi solda pozitif. Tüm vücudunda vizüel analog skalaya (VAS) göre 80 düzeyinde yaygın kas-kemik ağrıları tarif ediyordu. Omuz grafisinde; sol akromioklaviküler eklemden osteofitik değişiklikler, sağ humerus başında şüpheli kırık hattı, kallus formasyonu benzeri görünüm, nonhomojen kistik-sklerotik alanlar mevcuttu (Şekil 1a ve 1b). Hastanın laboratuvar incelemesinde; serum kalsiyum:8.5 mg/dl, fosfor:3.5 mg/dl, üre:38 mg/dl, kreatinin:0.8

mg/dl, SGPT:19 U/L, SGOT:20 U/L, açlık kan şekeri:97 mg/dl, alkalen fosfataz: 111 U/L, trigliserid: 207 mg/dl, kolesterol:205 mg/dl, total protein:7.2 g/dl, albumin:5.1 mg/dl idi. Eritrosit sedimentasyon hızı (38mm/saat) ve hemogramı normaldi. 24 saatlik idrarda kreatinin:1344 mg, kalsiyum:152.0 mg ve fosfor:882.0 mg ile normal düzeylerdeydi.

Olgunun sağ ve sol humerus başındaki görünüm nedeniyle, öncelikle paget hastalığı, malignite, enfeksiyon ve endokrinolojik patolojiler düşünüldü (Şekil 1a, Şekil 1b). Bu öntanılara yönelik tetkikler istendi. Bu tetkiklerden pelvis ve kranial grafileri normaldi. El grafisinde; sağ el 1. MKP eklem proksimali ve skafoid kemikte skleroz artışı vardı. Ayak grafilerinde; sağ ve sol ayak 1.MTP eklem çevresinde skleroz ve yeni kemik oluşum alanları mevcuttu (Şekil 2). Tibia ve femur grafileri normaldi. Serum protein elektroforezinde; alfa 2 globulin (13.4) artmış, albumin (55.7), beta globulin (14.2), alfa 1 (3.6) ve gama globulin (13.7) normaldi. CRP, brucella ve grup aglutinasyonları ve tümör belirteçleri negatif. Tiroid fonksiyon testleri ve kalsitonin normal, serum parathormon düzeyi (82.3 pg/ml) artmıştı. Tüm vücut kemik sintigrafisinde; her iki sternoklaviküler eklemden, sağda daha belirgin olmak üzere omuz eklemlerinde, 6. servikal vertebrada, 2. ve 4. lomber vertebrada, sağ el bileği ve muhtemelen skafoid kemikte, sol el bileği lateralinde aktivite artışı izlendi. Özellikle



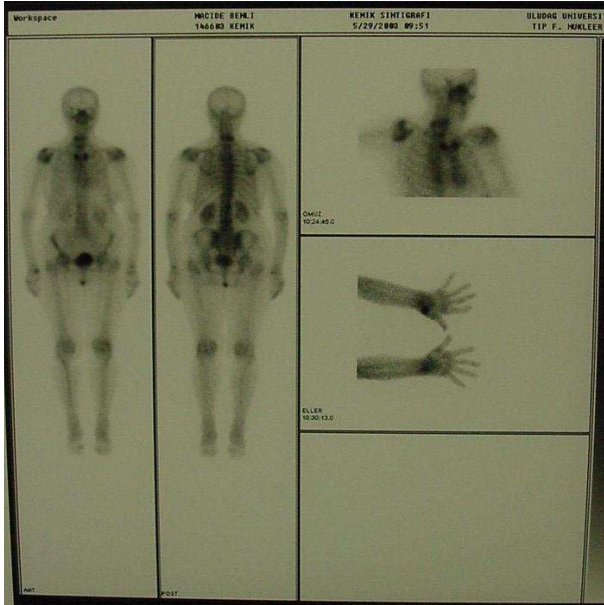
Şekil 1a.



Şekil 1b.



Şekil 2.



Şekil 3.

sternoklaviküler, omuz ve el bileğinde tanımlanan lezyonlar enflamatuvar patolojileri düşündürür nitelikteydi. Servikal vertebrada izlenen lineer aktivitenin kollaps açısından anlamlı olabileceği belirtilmişti (Şekil 3). Direkt grafileri Radyoloji A.D tarafından da değerlendirildi ve her iki humerus başında ve metatarsal kemiklerde izlenen lezyonlar osteonekroz sekeli olabilecek yapısal değişiklikler ve bu değişiklikler üzerine oturmuş dejeneratif değişiklikler (evre 5-6) olarak yorumlandı (Şekil 1,2).

Hastanın grafilerinde saptanan değişikliklerin avasküler nekroza bağlı dejeneratif değişiklikler olarak yorumlanması üzerine, bu değişikliklere

sebeplenebilecek patolojiler düşünüldü. Hastanın ileri yaşı ve artmış parathormon düzeyi (82.3 pg/ml) nedeniyle istenen tetkiklerde, 25-OHD (5 ng/dl) ve kalsitriol (4.3 ng/dl) düzeyleri düşük, kemik spesifik alkalen fosfataz (80 UI/L) düzeyleri yüksek bulundu. Etyolojiye yönelik alınan anamnez ve yapılan incelemelerde ek bir patoloji saptanmadı.

Hastaya osteomalazi tanısıyla günlük 2 mcg kalsitriol ve 500 mg elementer kalsiyum başlandı. Omuz hareketlerinin tamamen kısıtlanmamış olması ve ağrısının kısa süreli fizik tedaviye (TENS, hidroterapi, çark-merdiven parmak egzersizleri) yanıt vermesi nedeniyle poliklinik takibine karar verildi. Her iki ayak metatarsal bölgedeki ağrısı için uygun ortopedik ayakkabı ve ayak taban kaslarını güçlendirici egzersiz önerildi. Birinci aydaki kontrolde, hastanın kas-kemik ağrılarında VAS'a göre %50 azalma oldu. Serum PTH (67.1pg/ml) ve kemik spesifik ALP (63.5 UI/L) düzeyleri önceki değerlere göre azalmakla beraber hâla yüksek, 25-OHD (9.2 ng/dl) düzeyi ise düşük olmakla birlikte normale daha yakın bulundu. Kalsitriol (15ng/dl) ve diğer serum-idrar (24 saatlik) örnekleri kalsiyum, fosfor, üre, kreatinin ve kalsiyum/kreatinin (0.2) oranları bakımından normal bulundu. Mevcut tedaviye devam edilmesi ve hastanın 6. ayda aynı tetkiklerle kontrole gelmesi önerildi.

### Tartışma

Mineral homeostazının devamlılığı için D vitamini önemi büyüktür. D vitamini, parathormon ve kalsitonin ile birlikte hedef organlar olan kemik dokusu, böbrek ve barsakta kalsiyum metabolizmasını düzenleyen etkilerini gösterir. Kemik dokusunda yeniden yapılanma (remodeling), osteoklast aracılığıyla gerçekleşen rezorpsiyon ve osteoblast aracılığıyla gerçekleşen yeni kemik oluşumunun dengeli bir şekilde birbirini izlemesi ile sağlanır. Çeşitli lokal ve sistemik hormonal düzenleyiciler, bu ikili işlemi ayarlarlar. Osteomalazili hastalarda, mineralize olmayan kemik doku (osteoid) miktarındaki artışın yanısıra, hematopoetik sistemde bazı bozukluklar bulunmuştur. Nötrofil ve makrofajların fagositoz fonksiyonunda bozulma ve böylece enfeksiyon sıklığında artma gösterilmiştir. Anemi,

kemik hücrelerinde ve ekstramedüller hematopozde artış gözlenmiştir. D vitamini verilmesi bu değişiklikleri düzeltmektedir (3). Tüm bu histomorfolojik değişiklikler, yük binen ve mineralizasyon defekti olan bölgelerdeki kırık oluşumunu ve hematopoetik fonksiyonlardaki bozulmayla ortaya çıkabilen iskemi ve osteonekrozu açıklamaktadır. Osteomalazili erişkinin kırık bölgelerinde, iskelet deformitelerine yol açabilen avasküler nekroz yanısıra kaslarda hipokalsemiye bağlı tetani ve ağrı da görülebilir. Kas-iskelet sistemi ağrılarının sıkça görüldüğü yerler; spinal bölge, omuzlar, göğüs kafesi ve pelvistir (1,4). Bizim hastamızın da başvuru yakınması sol omuz ağrısı olmakla birlikte tüm vücutta yaygın kas-kemik ağrıları tanımlıyordu.

Osteomalazinin ayırıcı tanısında; maligniteler, enfeksiyon, paget hastalığı, travmatik kırıklar, osteoid osteoma, fibrogenesis imperfekta, florid, etidronat ve alüminyum toksisitesi düşünülmelidir. Radyolojik olarak (X-ray); 'looser hattı' olarak da adlandırılan stres kırıkları, yüzeyde parsiyel olarak kalsifiye kallus formasyonu şeklinde gözlenebilir. En sık, femur başı, pubik bölge ve skapula bölgesinde görülür. Ancak, osteonekroz gelişmişse, hastalığın evresine bağlı olarak tanı koymak güç olabilir. Osteonekrozun 6 evresi bulunmaktadır. Erken evreler (1 ve 2), asemptomatik veya ağrılı olabilir ve direkt radyogramlarda tanınmayabilir. Son evrelerde tipik radyolojik değişiklikler ortaya çıkar. Bunlar; 3. evrede subkondral radyolüseni (crescent sign), 4. evrede kollaps ve 5-6. evrelerde eklem çevresinin sferik yapısını kaybederek sekonder osteoartritik değişikliklerin (eklem aralığında daralma, skleroz, kistik değişiklikler ve tam destrüksiyon) oluşumudur. Bazı olgularda haftalar ve aylar süren ağrı periodları olur ve ardından radyografik değişiklikler gözlenir. Erken evrede MR tanıya yardımcıdır ve kemik iliği ödemiyle osteonekrozu görüntüleyebilir. 5. veya 6. evreye gelindiye ve erken evreleri gösteren filmler mevcut değil ise, tanı imkansız denecek kadar zordur. Ancak hastalığın seyriyle ve etyolojisiyle ilgili anamnez tanıya yardımcı olabilir. Tanıya yardımcı olabilecek diğer yöntemler; kemik sintigrafisi, Single Photon Emission Tomography ve kemik

biyopsisidir (5,6). Kemik biyopsisi rutinde önerilmez ancak cerrahi girişim geçiren hastalarda tanıyı doğrulamak amacıyla kullanılabilir. Sintigrafisi ise özellikle nontravmatik omuz avasküler nekrozunda tanıya yardımcıdır. Avasküler nekroz tespitinde MR ile kıyaslandığında, sensitivitesi %65, spesifitesi %81, doğruluğu ise %77 olarak saptanmıştır (7). Bütün bu yöntemler içinde duyarlılığı ve özgüllüğü en fazla olan yöntem MR'dır (8).

Bizim olgumuzda osteonekroz tanısı ancak geç dönemde (evre 5-6) radyolojik olarak konabildi. Osteomalazi ise, nedene yönelik laboratuvar testleri ile ortaya çıktı. 'Olguda klinik ve radyolojik olarak varlığını saptadığımız ileri evre avasküler nekroz, olgunun 3 yıl önce yaptığı poliklinik başvurusunda da saptanan bilateral omuz ağrısı, hareket kısıtlılığı ve MR'da tespit edilen ciddi tendon lezyonları ve dejeneratif kemik değişiklikleri ile ilişkilendirilebilir mi?' sorusu, iki olasılığı gündeme getirmektedir. Bunlardan birincisi; olgunun 3 yıl önce gözden kaçmış, osteomalaziye sekonder daha erken dönem (evre 2) osteonekroz olabileceği, ikincisi ise; olgunun 3 yıl önce ortaya çıkan omuz eklemdeki tendon patolojileri ve dejeneratif değişikliklere sonradan sekonder osteonekroz bulgularının da eklendiği bir osteomalazi olgusu olmasıdır. Olgunun 3 yıl önceki MR'ında bilateral omuz başında saptanan tendon patolojileri ve radyolojik kemik değişiklikleri ikinci olasılığı daha kuvvetle destekler görmektedir. Ancak, radyolojik olarak çok sayıda ve farklı patolojilerin varlığı veya içlerinden birine daha fazla yoğunlaşılması, bir diğerinin gözden kaçmasına sebep olmuş da olabilir.

Osteonekroz tanısına yardımcı yöntemlerden biri olan kemik sintigrafisine biz de başvurduk. Ancak bizim olgumuzda olduğu gibi, yapılan sintigrafik değerlendirmede saptanan aktivite artışının, dejeneratif ve enflamatuar süreçleri ayırmada, tek başına ne denli yeterli olduğu tartışılabilir. Radyolojik bulguların, klinik muayene bulguları, laboratuvar ve anamnez ile birleştirildiğinde daha değerli ve geçerli olduğu bilinen bir gerçektir (7). Bizim olgumuzun laboratuvar bulguları, alfa 2 globulindeki hafif yükselme hariç normal olarak değerlendirilmiş ve böylece enflamatuar patolojilerden uzaklaşmış,

omuz ve ayak direkt grafilerinde saptanan bulgular Radyoloji A.D tarafından osteonekroz sekeli olabilecek strüktürel ve sekonder osteoartritik değişiklikler olarak yorumlanmıştı. Dolayısıyla sintigrafinin tanı ve patolojinin doğasını (enflamatuvar, dejeneratif) ortaya koymada tek başına yeterli olmadığı sonucuna varılabilir.

Literatürde benzer şekilde, osteomalaziye sekonder her iki femur ve humerus başı avasküler nekrozlu bir olgu yer almaktadır (9). Mevcut osteomalazinin düşük enerjili travmalar sonrasında kırık oluşturmak suretiyle avasküler nekroz oluşturabileceği, bunun sonucu olarak da yukarıda bahsedilen ileri osteoartritik değişiklikler ve iskelet deformitelerine yol açabileceği bildirilmektedir. 66 yaşındaki bir Japon kadın olguda da, 1. metatarsal-falangeal (MTP) eklemde idiopatik osteonekroz tespit edilmiş, ağrılı eklem, 1. MTP eklem füzyonu yapılarak tedavi edilmiştir (10). Omuz bölgesinin, direkt olarak yük taşımayan bir bölge olması nedeniyle ender tutulum bölgelerinden olması, humerus ve metatarsal kemiklerin bilateral tutulmuş olması nedeniyle, olgumuzun bildirilmeye değer nitelikte olduğu düşünüldü.

Sonuç olarak, avasküler nekroz kliniğinin ve patofizyolojisinin tam aydınlanmamış olması, çoğunlukla mevcut birtakım patolojilerin üzerine eklenmesi, tanı ve tedaviyi geciktirebilmektedir (8). Sebep sonuç ilişkisi dahilinde yer alan patolojilerin, radyoloji-klinik-laboratuvar üçgeni içinde daha dikkatli ve şüpheli bir yaklaşımla analiz edilmesi, doğru tanı koymayı sağlayabilir.

## KAYNAKLAR

1. Stamp TCB. Rickets and Osteomalacia, Metabolic Bone Diseases. In: Klippel JH, Dieppe PA eds. Rheumatology. Mosby, London, 1998: 7.35-7.36.
2. Mazieres B. Osteonecrosis, Regional and Heritable Bone and Collagen Diseases. In: Klippel JH, Dieppe PA (eds) Rheumatology. Mosby, London 1998. p.7.41-7.42.
3. Reichel H, Koeffler P, Norman A. The role of vitamin D endocrine system in health and disease. N Engl J Med 1998; 320: 980-91.
4. Francis RM, Selby PL. Osteomalacia. Bailliere's Clinical Endocrinology and Metabolism 1997; 11(1): 145-62.
5. Mont MA, Paymon RK, Caporte DM et al. Atravmatic osteonecrosis of the humeral head. J Rheumatol 2000; 27(7): 1766-73
6. Mirzai R, Chang C, Greenspan A et al. Avascular necrosis (Review). Compr Ther 1998; 24(5): 251-5
7. Sakai T, Sugana N, Nishii T et al. Bone scintigraphy screening for osteonecrosis of the shoulder in patients with osteonecrosis of the humeral head. Skeletal Radiol 2002; 31(11): 650-5
8. Assouline-Dayon Y, Chang C, Greenspan A et al. Pathogenesis and natural history of osteonecrosis. Semin Arthritis Rheum 2002; 32(2): 94-124
9. Jaffres R, Cherbuy J. A case of combined osteonecrosis of the femoral head and the humeral head with osteomalacia secondary to chronic pancreatitis. Rev Rhum Mal Osteoartic 1974; 41(7): 57-60
10. Suzuki J, Tanaka Y, Omokawa S et al. Idiopathic osteonecrosis of the first metatarsal head: a case report. Clin Orthop 2003; 415: 239-43.

**Geliş Tarihi:** 11.11.2003

**Yazışma Adresi:** Dr.Alev AY

Uludağ Üniversitesi Atatürk Rehabilitasyon  
Uygulama ve Araştırma Merkezi  
Kükürtlü Kaplıcaları, PK:16080, BURSA  
ay\_alev@hotmail.com