

Bilateral epididimal sarkoidozda organ koruyucu cerrahi: Olgu sunumu

Organ preservation surgery for bilateral epididymal sarcoidosis: a case report

Muhsin Balaban, Mustafa Yücel Boz, Oktay Akça, Ahmet Selimoğlu, Selami Albayrak

Kartal Dr. Lütfi Kırdar Eğitim ve Araştırma Hastanesi 2. Üroloji Kliniği, İstanbul

Özet

Sarkoidoz, nedeni henüz belli olmayan ve vücudun birçok organında, özellikle akciğerde görülebilen sistemik bir hastalıktır. Sarkoidoz tanısı için histolojik olarak non-kazeöz granülomatöz reaksiyonun görülmesi patognomonik bulgu olarak kabul edilir. Sarkoidozun ürogenital sistemi tutması enderdir. Sarkoidozun bilateral epididim-leri tutması oligospermiye neden olur. Burada 2 yıl önce akciğer sarkoidozu tanısı alan, 1 yıldır sağ testiste ve son zamanlarda sol testiste başlayan ağrı ve sertlik nedeniyle kliniğimize başvuran 25 yaşındaki hastanın testis koruyucu yaklaşım ile değerlendirilmesi ve tedavisinin planlanması literatür eşliğinde sunulmuştur.

Anahtar sözcükler: Epididim; oligospermi; sarkoidoz.

Abstract

Sarcoidosis is a systemic disease with unknown etiology, which presents in a various organs in the body, mostly lungs. Histologically non-caseating granuloma formation is accepted as pathognomonic for diagnosis of sarcoidosis. Sarcoidosis rarely affects urological system. Sarcoidosis of bilateral epididymis causes oligospermia. Here, we present 25-year-old patient diagnosed with lung sarcoidosis 2 years ago, consulted our clinic with pain and stiffness in the right testicle for a year and recently in the left testicle, and treated with testis sparing approach with light of current literature.

Key words: Epididymis; oligospermia; sarcoidosis.

Geliş tarihi (Submitted): 25.01.2010

Düzeltilme sonrası kabul tarihi (Accepted after revision): 06.04.2010

Sarkoidoz nedeni belli olmayan, birçok organı tutabilen ve non-kazeöz nekrotizan granülomatöz iltihap ile seyreden bir bağışıklık sistemi hastalığıdır. Amerikada siyahlarda görülme insidansı beyazlara göre 3.8 kat daha fazladır.^[1] Sarkoidozun ürogenital sistemi tutması alışlagelmiş bir durum değildir. Literatüre bakıldığında erkek üreme sistemini etkileyen 60 vaka tanımlanmıştır ve bu vakaların çoğu 20'li ve 30'lu yaşlardaki erkek hastalardır.^[2,3] Epididim ve testis ayrı ayrı tutulabileceği gibi ikisi aynı anda da etkilenebilir.^[4,5] Skrotumda küçük bir sertlik olabileceği gibi, testis tümörünü taklit edebilecek kitle olarak da görülebilir.

Olgu sunumu

Yirmibeş yaşında erkek hasta sağ skrotumda 1 yıldır var olan ve son 2 haftadır sol skrotumda da başlayıp yavaş yavaş artan sertlik ve ağrı nedeniyle kliniğimize başvurdu. Akciğer sarkoidoz tanısını 2

yıl önce alan hasta göğüs hastalıkları polikliniğinin takibi altında bulunmaktaydı. Sarkoidoz tanısı akciğer grafisinde görülen bilateral hiler lenfadenopati nedeniyle yapılan biyopsi sonrası konmuştu. Hasta 5 yıldır sigara içiyordu. Soygeçmişinde bir özellik saptanmadı.

Hastanın fizik muayenesinde her iki kol ve bacakta cilt altında lipomatöz lezyonlar vardı. Skrotum muayenesinde sağda 4x3 cm, solda 2x3 cm olmak üzere, orijininin testis veya epididim olduğu net olarak belirlenemeyen sert kitleler palpe edildi. Skrotumda hassasiyet yoktu. Laboratuvar incelemelerinde rutin biyokimya ve hemogram değerleri normaldi. Sedimentasyon değeri 14 mm/sn idi. Serum testis tümör belirteçleri (alfa-fetoprotein, beta-insan koryonik gonadotropin) normaldi. Üç gün arka arka ya alınan sabah ilk idrar örneği incelemelerinde aside dirençli bakteriye rastlanmadı. İdrar tahlilinde piyüri vardı. İki kez tekrarlanan semen analizinde oligos-

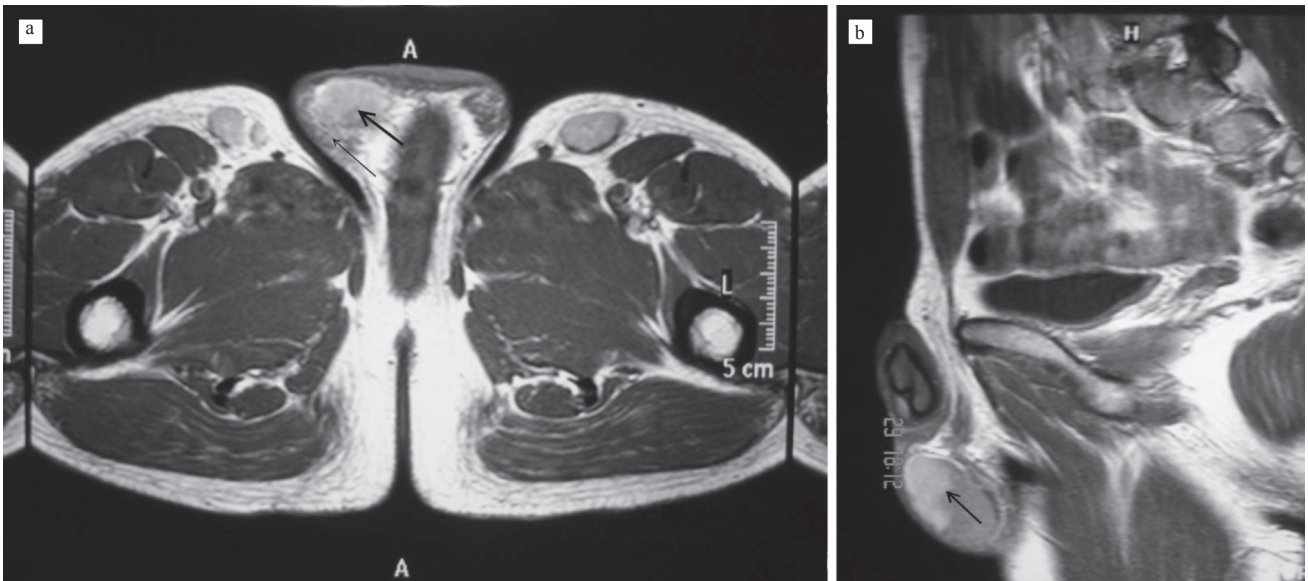
permi saptandı. Akciğer grafisinde bilateral hiler dolgunluk gözlemlendi. Hastanın 1 ay önce başka bir merkezde yapılan pelvis magnetik rezonans görüntüleme (MRG) tetkikinde sağ testis ve epididimde yerleşim gösteren solid karakterde intravenöz kontrast madde verilmesini takiben belirgin kontrastlanma sergileyen 22x28 mm boyutlarında nodüler kitle lezyonu tanımlandı (Şekil 1).

Hastaya bu bulgularla testis tümörü ve sarkoidoz ön tanılarıyla inguinal transvers insizyonla eksplorasyon yapıldı. Spermatik kordun kanlanması artmış olduğu görüldü. Tunika vajinalis açılarak testis eksplere edildi. Tunika vajinalis kalınlaşmış ve tunika albuginea yapılaşmıştı. Tunika albuginea insize edilerek açıldı ve seminifer tübüller normal olarak gözlemlendi. Epididim lokalizasyonlu testis içerisine doğru uzanım gösteren 4x3 cm ebatlı sert kitleden (Şekil 2), testis ve kitle ile tunika vajinalis ve tunika albugineayı içerecek şekilde eksizyonel biyopsi yapılarak frozen inceleme için patolojiye gönderildi. Daha önceden sarkoidoz tanısı olan hasta için gönderilen patoloji non-kazeöz granüloamatöz reaksiyon olarak tanımlandı ve bu sarkoidoz ile uyumlu bulundu (Şekil 3). Kitlenin büyük kısmı epididimde yerleşmiş olduğu için total eksizyonun testis kanlanmasını bozacağı düşünüldü ve mevcut kitle geride bırakılarak operasyon sonlandırıldı.

Tartışma

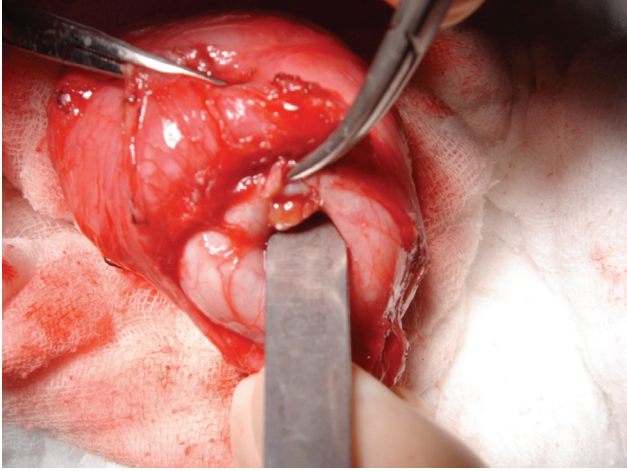
Sarkoidoz idiopatik, birçok sistemi etkileyen ve non-kazeöz granülom formasyonu ile karakterize bir hastalıktır. Belirtilerin çeşitliliğinden dolayı, sarkoidoz tanısını koymak her zaman kolay değildir. Klasik olarak sarkoidoz tanısı akciğer grafisinde bilateral hiler dolgunluk tespit edildikten sonra biyopsi ile konulmaktadır. Sarkoidozun genitoüriner sistemi tutması nadirdir ve vakaların ancak %0.2'sinde görülmektedir.^[6] Sarkoidoz genitoüriner sistemde böbreklerde nefrokalsinoz, ağrısız testiküler kitle ya da testislerde ağrı ve hassasiyete neden olan akut epididimoorşit ile kendini gösterebilir. Daha önceden sarkoidoz tanısı almış olan bir hastanın genitoüriner muayenesinde ele gelen kitle palpe ediliyor ya da skrotal ultrasonografisinde kitleden bahsediliyorsa, bu hastada genitoüriner sistem sarkoidozundan şüphelinmelidir.

Sarkoidoz testis ve epididimi ayrı ayrı tutabileceği gibi, ikisini de aynı anda tutabilmektedir. Klinik olarak sarkoidozun epididim ve testisi aynı anda etkilediği vakalar daha çok tek taraflı, nodüler, diffüz ve ağrısız olmaktadır.^[7] Bilateral lezyonlar daha nadir görülmektedir ve sunduğumuz vakada hasta bilateral testiküler sertlik ve ağrı nedeniyle başvurmıştır. Bu hastalık etkilediği kişilerde vakamızda olduğu gibi infertiliteye neden olabilir. Sarkoidoz skrotal granulo-

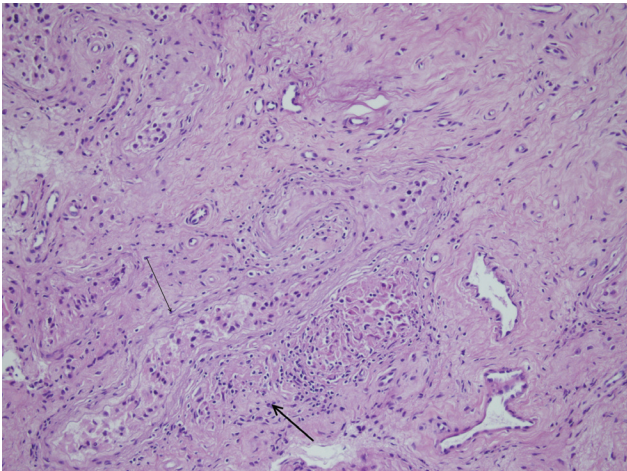


Şekil 1

(a, b) Sağ testis ve epididimde yerleşim gösteren, solid karakterde, kontrast madde verilmesi sonrası belirgin kontrastlanma sergileyen 22x28 mm boyutlarındaki nodüler kitle lezyonun (ok) MRG görüntüleri.

**Şekil 2**

Epididimde yerleşim gösteren ve testis içerisine doğru uzanan sert kitlenin ameliyat sırasındaki görüntüsü.

**Şekil 3**

Histolojik kesitte non-kazeöz granülom dokusunun (kalın ok) seminifer tübülde (ince ok) oluşturduğu bası görülmektedir (H-E x200).

matöz inflamasyon, duktal obstrüksiyon ve fibrozise neden olarak hastalarda oligospermiye neden olabilir.^[8] Sarkoidoz testisi etkilediği zaman, histolojik olarak normal testis dokusunun multipl non-kazeöz granülom, dev hücreler ya da lenfosit infiltrasyonu ile yer değiştirdiği saptanabilir. Kalan seminifer tübüllerde de spermatogeneze rastlanmayabilir.^[9] Genç hastalarda testiste ele gelen sert kitleyle karşılaşıldığında akla ilk olarak testis tümörü gelmekte ve skrotal ultrasonografide sarkoidoz lezyonu hipoeoik kitle olarak değerlendirilmektedir. Kodama ve ark.^[2] 60 vakalılık sarkoidoz derlemelerinde, bu hastaların 23'üne orşiekt-

tomi ya da epididimektomi yapıldığını belirtmişlerdir. McWilliams ve ark.^[3] hastaların çoğunun 20'li ve 30'lu yaşlarda olduğunu tespit etmişlerdir. Bu yaş grubu testis kanseri için dikkat edilmesi gereken bir dönemdir.

Sarkoidoz tanılı hastalarda testiküler kitleyi tedavi etmek zordur. Sarkoid psödötümör için konservatif yaklaşımla uygulanan steroid tedavisi, germ hücreli tümörlerin büyümesine ve metastaz yapmasına neden olabilir. Tümör belirteçleri negatif olan ve eski sarkoidoz tanılı hastalarda orşiektomiden kaçınılabilir, fakat granülomatöz lezyonların seminom ile aynı anda bulunabileceği göz önünde bulundurulmalıdır.^[10,11] Sarkoidoz tanılı, tümör belirteçleri negatif olan ve sarkoidozun bilateral testisi etkilediği hastalarda testis koruyucu yaklaşım ön planda tutulmalıdır.^[12] Bu hastalarda testisin inguinal kanaldan doğrultulduktan sonra eksizyonel biyopsi yapılarak frozen inceleme yapılması ve sarkoidoz tanısının konulması bir seçenek olarak kullanılabilir. Testis tümör tanısında kanda bakılan belirteçlerden alfa-fetoprotein seviyesinin karaciğerde muhtemel sarkoid aktivitesi nedeniyle biraz yüksek olabileceği hatırlanmalıdır.^[13]

Bu vakada testis koruyucu yaklaşım ile hasta tedavi edildi ve göğüs hastalıkları kliniği tarafından steroid tedavisi başlandı. Literatürde steroid ile tedavi edilen ve yüz güldürücü sonuçlar alınan testiküler sarkoidoz vakaları mevcuttur.^[14,15] Steroid tedavisi sistemik hastalığın aktivitesinin baskılanmasının yanında, gonadal fonksiyonlarda ve spermatogenezde düzeltilmeler sağlayabilmektedir.^[9]

MRG testiküler sarkoidoz tanısı için kullanılması- na rağmen, bu tetkik sadece inflamatuvar değişikliklerle ilgili bilgi verebilir. MRG ile benign, malign ve inflamatuvar lezyonların ayrımı yapılamamaktadır.^[2]

Sistemik bir hastalık olan sarkoidozun malign neoplazmlara neden olup olmadığı tartışmalı bir konudur. Bazı çalışmalar sarkoidozun ürogenital malignitelerle birlikte görüldüğünü göstermişlerdir.^[16,17] Brincker ve Wilbek'in^[18] akciğer sarkoidozu olan 2,544 hasta üzerindeki epidemiyolojik çalışmasında, bu hastalarda normal popülasyona göre malign lenfomanın 11 kat ve akciğer kanserinin 3 kat daha fazla görüldüğü tespit edilmiştir. Bunun aksine, Romer^[19] ve ark. 555 akciğer sarkoidozu olan hastaların verilerine dayanarak yaptıkları çalışmalarında, bu hastalarda akciğer kanserinin ve malign lenfoma insidansının normal popülasyonla farklı olmadığını saptamışlardır.

Sarkoidozun erkek üreme organlarındaki etkisi tahmin edilemeyeceğinden, ilerde çocuk sahibi olmayı planlayan tüm hastalardan semen analizi istenmelidir. Bu hastalarda oligospermi saptandığı zaman ilerde yardımcı üreme tekniklerinde kullanılmak üzere sperm bankası seçeneği sunulmalıdır. Azospermisi bulunan hastalarda farklı zamanlarda birden çok semen analizi yapılmalı ve oligospermi saptandığı zaman bu hastalar sperm bankasına yönlendirilmelidir. Her zaman mümkün olmamakla birlikte steroid tedavisi zamanla semen analizinde düzelmelere neden olabilmektedir.^[7]

Sonuç olarak, genitoüriner sistem sarkoidozu nadir görülmesine karşın testiste kitleyle başvuran hastalarda yaşa bakılmaksızın ayırıcı tanıda göz önünde bulundurulmalıdır. Cerrahi tedavi sadece sarkoidoz tanısından emin olunamadığı ya da sebat eden ağrı olduğunda düşünülmelidir. Sarkoidozun major organları etkilediği ya da zamanla gerilemediği zaman steroid tedavisi uygulanmalıdır. Ürogenital sarkoidozu olan hastalardaki potansiyel infertilite riski göz önüne alınarak semen analizi yapılmalı ve oligospermisi olan hastalara sperm bankası seçeneği sunulmalıdır.

Çıkar çatışması

Yazarlar, herhangi bir çıkar çatışmasının söz konusu olmadığını bildirmişlerdir.

Kaynaklar

1. Rybicki BA, Major M, Popovich J Jr, Maliarik MJ, Lannuzzi MC. Racial differences in sarcoidosis incidence. A 5-year study in a health maintenance organization. *Am J Epidemiol* 1997;145:234-41.
2. Kodama K, Hasegawa T, Egawa M, Tomosugi N, Mukai A, Namiki M. Bilateral epididymal sarcoidosis presenting without radiographic evidence of intrathoracic lesion: review of sarcoidosis involving the male reproductive tract. *Int J Urol* 2004;11:345-8.
3. McWilliams WA, Abramowitz L, Tiamson EM. Epididymal sarcoidosis: case report and review. *J Urol* 1983;130:1201-3.
4. Martin B, Rutchik S, Rayford, Sorbera T, Upshaw J. Sarcoidosis presenting as bilateral testicular masses. *J Urol* 2001;165:534.
5. Massarweh NN, Bhalni VK, Shaw KK, Crawford B, Lang E, Davis R. Testicular preservation of sarcoidosis and organ preservation: case report and review of management strategies. *Urology* 2006;67:200.
6. Turk CO, Schacht M, Ross L. Diagnosis and management of testicular sarcoidosis. *J Urol* 1986;135:380-1.
7. Ryan DM, Lesser BA, Crumley LA, Cartwright HA, Peron S, Haas GP, et al. Epididymal sarcoidosis. *J Urol* 1993;149:134-6.
8. Svetec DA, Waguespack RL, Sabanegh ES Jr. Intermittent azospermia associated with epididymal sarcoidosis. *Fertil Steril* 1998;70:777-9.
9. SultanAli I, Zaman M, Yende S. Sarcoidosis mimicking disseminated testicular cancer. *South Med J* 2005;98:935-6.
10. Singer AJ, Gavrell GJ, Leidich RB, Quinn AD. Genitourinary involvement of systemic sarcoidosis confined to testicle. *Urology* 1990;35:442-4.
11. Hass GP, Badalament R, Wonnell DM, Miles BJ. Testicular sarcoidosis: case report and review of the literature. *J Urol* 1986;135:1254-6.
12. Khan SA, Richenberg JL, Fletcher MS. Scrotal swelling in sarcoidosis. *J R Soc Med* 2004;97:487-8.
13. Sieber PR, Duggan FE. Sarcoidosis and testicular tumors. *Urology* 1988;31:140-1.
14. Metcalfe MS, Rees Y, Morgan P, O'Reilly K, Sandhu DP. Sarcoidosis presenting as a testicular mass. *Br J Urol* 1998;82:769-70.
15. Rees DA, Doods AL, Rathbone N, Davies JS, Scanlon MF. Azoospermia in testicular sarcoidosis is an indication for corticosteroid therapy. *Fertil Steril* 2004;82:1672-4.
16. Blacher EJ, Maynard JF. Seminoma and sarcoidosis: an unusual association. *Urology* 1985;26:288-9.
17. Droz JP, Ruffie P, Piot G, Ghosn M, Caillaud JM, Elias D, et al. Sarcoidosis and testicular germ cell tumor. *Scand J Urol Nephrol* 1990;24:171-3.
18. Brinker H, Wilbek E. The incidence of malignant tumors in patients with respiratory sarcoidosis. *Br J Cancer* 1974;29:247-51.
19. Romer FK, Hommelgaard P, Schou G. Sarcoidosis and cancer revisited; a long-term follow-up study of 555 Danish sarcoidosis patients. *Eur Respir J* 1998;12:906-12.

Yazışma (Correspondence): Dr. Muhsin Balaban.
Kartal Dr. Lütfi Kırdar Eğitim ve Araştırma Hastanesi Cevizli,
Kartal, İstanbul, Türkiye.
Tel: 0216 444 39 00/1921 e-posta: muhsinbalaban1980@yahoo.com
doi:10.5152/tud.2011.015