



Çölyak Hastalığı ile Birliktelik Gösteren Duodenal Adenokarsinomun Görüntüleme Bulguları

The Imaging Findings of Duodenal Adenocarcinoma in Patient with Celiac Disease

© Fatma Kulalı, © Aslıhan Semiz Oysu, © Yaşar Bükte

Sağlık Bilimleri Üniversitesi, Ümraniye Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Radyoloji Kliniği, İstanbul, Türkiye

Öz

İnce barsak tümörleri, oldukça nadir görülmekte olup gastrointestinal tümörlerin yaklaşık %1-5'ini oluşturmaktadır. Ancak, gluten enteropatisi olarak da bilinen Çölyak hastalığında, ince barsak tümör riski oldukça artmaktadır. Çölyak hastalığında, en sık lenfoma gelişmektedir. En çok T-hücreli non-Hodgkin lenfoma görülür. Nadiren adenokarsinom ve adenom da saptanabilir. Adenokarsinom, daha çok ince barsak proksimal kesimlerinde gelişmektedir. İnce barsak adenokarsinomunun prognozu lenfomadan daha kötüdür. Literatürde, çok az sayıda Çölyak hastalığı ve ince barsak adenokarsinomunun birlikte görüldüğü olgu bildirilmiş olup görüntüleme özellikleri üzerine vurgu oldukça azdır. Bu sebeple, Çölyak hastalığı ve duodenal adenokarsinom birlikteliğinin izlendiği nadir görülen bu olgunun, bilgisayarlı tomografi bulguları ve manyetik rezonans görüntüleme özellikleri sunuldu.

Anahtar Sözcükler: Adenokarsinom, Çölyak hastalığı, duodenum, kanser

Abstract

Small intestine tumors are extremely rare. They account for approximately 1-5% of all gastrointestinal tumors. However, the risk of development of small intestine tumor increases in patients with celiac disease. Celiac disease is also known as gluten-sensitive enteropathy. Lymphoma is the most common small intestine tumor in patients with Celiac disease. Adenocarcinoma and adenoma of the small intestine are less common. Adenocarcinoma is frequently seen in the proximal segments of the small intestine. The prognosis of adenocarcinoma is worse than lymphoma. In the literature, there are few reported cases of duodenal adenocarcinoma in patients with Celiac disease and the imaging findings were not emphasized enough. For this reason, in this study, computed tomography and magnetic resonance imaging findings in a patient with duodenal adenocarcinoma associated with Celiac disease are presented.

Keywords: Adenocarcinoma, Celiac disease, duodenum, cancer

Giriş

Çölyak hastalığı, gluten intoleransı ve ince barsak villilerinde hasar ile karakterize otoimmün bir hastalıktır (1). İnce barsak tümörleri, normal popülasyonda oldukça nadir görülmekle birlikte gastrointestinal sistem tümörlerinin yaklaşık %1-5'ini oluşturmaktadır (2). Ancak, Çölyak hastalığında ince barsak tümör riski artmıştır (2). En sık lenfoma gelişmekte olup nadiren adenokarsinom ve adenom da saptanabilir (2). Adenokarsinom, daha çok proksimal ince barsak segmentlerini etkilemektedir (3). Adenokarsinomun prognozu lenfomaya göre daha kötüdür (2,3). Bu sebeple, erken tanı önemlidir. Erken tanıda, görüntülemenin önemli bir rolü bulunmaktadır. Nadir görülen bir olgu olan Çölyak hastalığı ve duodenal adenokarsinom birlikteliğinin izlendiği olgumuzun

bilgisayarlı tomografi (BT) ve manyetik rezonans görüntüleme (MRG) bulguları aşağıda sunulmuştur. Bu olgu sunumu için, hastadan bilgilendirilmiş onam alınmıştır.

Olgu

Yaklaşık bir yıldır Çölyak hastalığı tanısı olan 32 yaşında kadın hasta, bulantı, kusma ve karın ağrısı şikayetleri ile hastanemize başvurdu. Daha önce de benzer şikayetleri olmuştu ve iki ay önce yapılan üst gastrointestinal sistem endoskopisinde, duodenal ülser ve darlık tanımlanmıştı. Alınan duodenal biyopsilerin sonucu benign olarak raporlanmıştı. Darlığa balon-buji dilatasyon yapılmıştı. Ancak, hasta iki ay sonra daha şiddetli şikayetlerle hastanemize tekrar başvurdu. Yapılan endoskopisinde darlığın balon-buji dilatasyona rağmen oldukça ilerlediği

Yazışma Adresi/Address for Correspondence: Fatma Kulalı

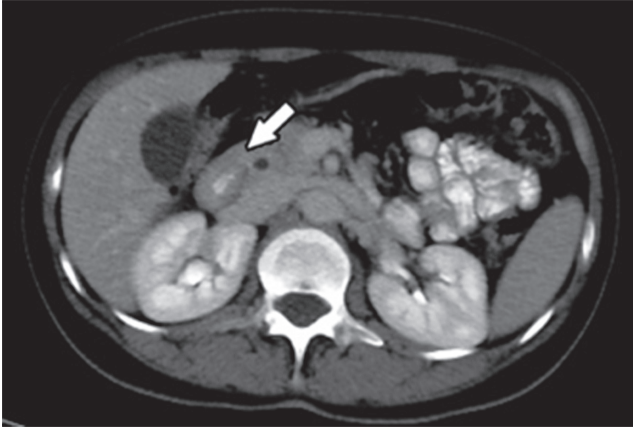
Sağlık Bilimleri Üniversitesi, Ümraniye Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Radyoloji Kliniği, İstanbul, Türkiye
Tel.: +90 216 632 1818*1462 E-posta: ftkulali@gmail.com ORCID ID: orcid.org/0000-0002-9392-6907

Geliş Tarihi/Received: 11 Mayıs 2017 **Kabul Tarihi/Accepted:** 13 Eylül 2017

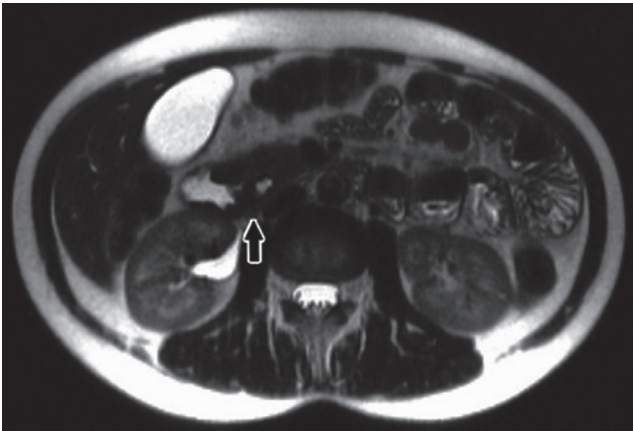
©Telif Hakkı 2018 Sağlık Bilimleri Üniversitesi Haseki Eğitim ve Araştırma Hastanesi Haseki Tıp Bülteni, Galenos Yayınevi tarafından basılmıştır.

©Copyright 2018 by The Medical Bulletin of University of Health Sciences Haseki Training and Research Hospital
The Medical Bulletin of Haseki published by Galenos Yayınevi.

saptandı. Alınan biyopsilerde patoloji sonucu, villuslarda orta derecede atrofi ve kript hiperplazisi şeklinde raporlandı. Endoskopi ve patoloji sonuçları arasındaki uyumsuzluk nedeni ile hastaya intravenöz ve oral kontrastlı tüm batin BT tetkiki yapıldı. Duodenum ikinci ve üçüncü kısımda, çepeçevre düzgün, yer yer nodüler duvar kalınlaşmaları ile karakterize lüminal daralma izlenmekteydi (Resim 1). Duvar kalınlaşmalarının benign-malign ayırıcı tanısını yapabilmek ve olası bir kitleyi daha ayrıntılı değerlendirmek için dinamik üst batin MRG, difüzyon ağırlıklı görüntüleme (DAG) ve manyetik rezonans kolanjiyopankreatografi tetkikleri yapıldı. MRG, tetkiklerinde duodenum ikinci ve üçüncü kısmını çepeçevre saran çoğunlukla simetrik yer yer polipoid duvar kalınlaşması ile karakterize kitle görünümü izlendi. Bu seviyede lümen belirgin daralmıştı. Duvar kalınlaşmaları ile karakterize kitle, T1 ve T2 ağırlıklı sekanslarda hipointens izlendi (Resim 2). Kontrastlı T1 ağırlıklı sekanslarda yoğun kontrast tutulumu gözlemlendi



Resim 1. Kontrastlı aksiyel bilgisayarlı tomografi tetkikinde duodenal simetrik çepeçevre duvar kalınlaşması ile karakterize malign-benign ayırımı yapılamayan lezyon (beyaz ok)



Resim 2. Aksiyel T2 ağırlıklı sekansda hipointens, çevre yağlı dokuya uzanım göstermeyen düzgün konturlu duodenumda duvar kalınlaşmaları ve lüminal daralma ile karakterize kitle (siyah ok)

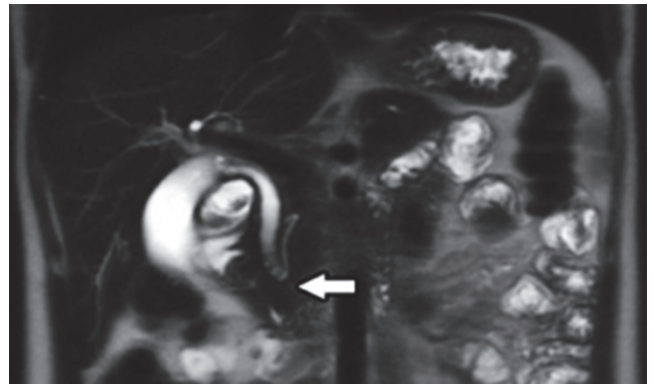
(Resim 3). Proksimalinde duodenumda dilatasyon mevcuttu. Tariflenen kitle ampulla vateri ve komşuluğunda pankreas başına da uzanmakta olup koledokta dilatasyona neden olmaktadır (Resim 4). Komşuluğunda paraaortik alanda milimetrik lenf nodları mevcuttu. Koledok içinde de kalkül saptandı. DAG'de, duvar kalınlaşmaları ve darlık lokalizasyonunda patolojik difüzyon kısıtlanması seçilmekteydi (Resim 5). Ayrıca, paraaortik milimetrik lenf nodları da patolojik difüzyon kısıtlanması göstermekteydi. Malign kriterler gösteren kitle ön tanısıyla opere edildi. Kitle ile birlikte komşu paraaortik lenf nodları da çıkarıldı. Patoloji sonucu, taşlı yüzük hücreli adenokarsinom olarak bildirildi. Kitle komşuluğundan çıkarılan paraaortik milimetrik lenf nodlarında da tutulum mevcuttu.

Tartışma

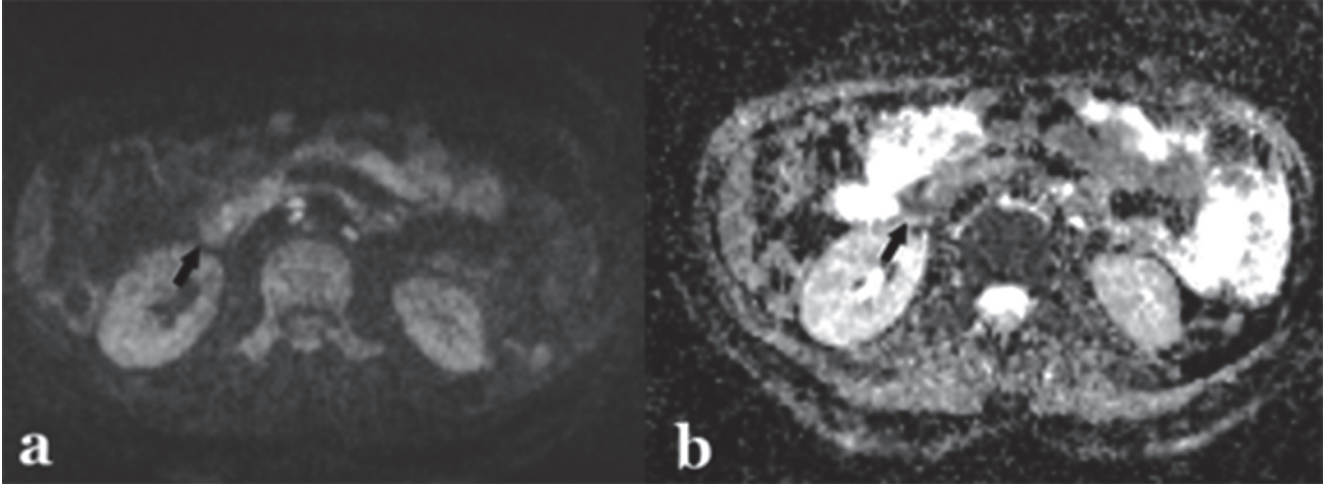
Çölyak hastalığı, dünyanın değişik ülkelerinde yaklaşık %0,5-1 sıklıkla görülmektedir (4). Çölyak hastalığı, gluten ile ilişkili otoimmün bir hastalık olup genetik geçiş göstermektedir (3,4). Çölyak hastalığında, otoimmün değişikliklere ve kronik enflamasyona sekonder daha çok



Resim 3. Kontrastlı aksiyel T1 ağırlıklı incelemede, kontrastlanan duodenal kitle (beyaz ok)



Resim 4. Koronal T2 ağırlıklı incelemede, obstrüksiyona neden olan duodenal kitle (beyaz ok), dilate koledok ve dolgun Wirsung kanalı



Resim 5. Difüzyon ağırlıklı görüntülemeye (a), hiperintens ve görünür difüzyon katsayısı haritasında (b), hipointens izlenen kitlenin patolojik difüzyon kısıtlanması (siyah ok)

intestinal villilerde atrofi ve fissür gelişimleri izlenmekte olup daha nadiren polip gelişimi, ülserasyonlar, kronik enflamasyona sekonder benign darlıklar ve malign kitleler görülebilmektedir (5). Otoimmün hastalığı olanlarda, barsak anslarında bir darlık saptandığında, ilk planda benign-malign ayırıcı tanısı yapılmalıdır. Çölyak hastalığı, kadınlarda daha çok görülmekte olup ince barsak tümör birlikteliği daha çok erkeklerde izlenmektedir (2). Çölyak hastalığında ince barsak tümör riski yaklaşık 60-80 kat artmaktadır (6). İnce barsak lenfoması, adenokarsinoma nazaran, yaklaşık 10 kat daha fazla görülmektedir (7). Literatürde, Çölyak hastalığı ve duodenal adenokarsinomun birlikte olduğu olgu sayısı oldukça azdır (2). Literatürde, jejunal adenokarsinom ile birliktelik daha fazla görülmektedir (8,9). Bazen Çölyak hastalığı olan olgular, uzun süre asemptomatik olabilir ve Çölyak tanısı konulmadan önce, sadece ince barsak kitlesine bağlı bulgularla karşımıza çıkabilir (2). Görüntülemenin, lenfoma ve adenokarsinom gibi ince barsak tümörlerinin tanısında oldukça önemli bir yeri vardır. Özellikle semptomatik olgularda, alınan biyopsi sonucu benign bulgular olarak raporlansa bile, görüntüleme ile ayrıntılı inceleme gereklidir. Görüntülemeye, BT ve MRG gibi kesitsel radyolojik incelemeler kullanılabilir. BT, daha ince kesitlerin uygulanabilmesi ve üç boyutlu rekonstrüksiyona izin vermesi nedeniyle barsak anslarının ayrıntılı incelemesine olanak sağlamaktadır. Ayrıca, oral kontrast uygulaması ile ince barsak lümeninde uygun distansiyonu sağlamada ve oral kontrast madde pasajını değerlendirmede önemli bir tetkiktir. Ancak, saptanan duvar kalınlaşmasının ve darlığın, enflamasyona sekonder tutulum veya malign kitle ayırıcı tanısında bazen yetersiz kalmaktadır. BT ile benign-malign darlık ayrımı net yapılamayan hastalarda MRG, problem çözücü modalitedir. MRG, kitle özelliklerini tanımlamada, özellikle duodenal kitlenin komşu yapılarla ilişkisini ve

varyasyonları değerlendirmede, oldukça önemli bir tetkiktir (10). MRG ile birlikte DAG tetkikinin de yapılması, benign-malign darlık ayırıcı tanısını kolaylaştırmakta ve doğru tanı olasılığını artırmaktadır (11). Ayrıca, DAG, milimetrik lenf nodlarının benign-malign ayırımında da yol gösterici olabilmektedir.

İnce barsak lenfoması, polipoid, infiltratif veya ekzofitik kitle şeklinde izlenebilir. Eşlik eden mezenterik lenfadenopati, lenfomada daha çok görülür. İnce barsak adenokarsinomları, daha çok obstrüksiyon ve lüminal daralmaya neden olan duvar kalınlaşmaları ile karakterize infiltratif kitle şeklinde izlenirler (12). Barsak duvarında kas tabakasının tutulumuna sekonder anevrizmatik lüminal genişleme izlenebilir. Çevre yağlı dokuya sıklıkla spiküle uzanım gösterirler (12). Bizim olgumuzda, lüminal daralmaya ve obstrüksiyona neden olan, ancak çepeçevre düzgün duvar kalınlaşması ve yer yer lümen içine polipoid uzanımları olan kitle şeklinde izlenmekteydi. Çevre yağlı dokuya uzanım izlenmedi. İnce barsak lenfoması ve adenokarsinomu, değişken kontrastlanma gösterebilir ve her ikisi de, sıklıkla T2 ağırlıklı sekanslarda hipointens izlenir. DAG, suyun difüzyon hareketini göstermektedir. Difüzyon kısıtlanması, artmış hücresel içerik veya apse gibi nedenlerle suyun difüzyonunun kısıtlanmasını ifade etmektedir. Görünür difüzyon katsayısı (ADC) haritası, DAG sırasında eşzamanlı oluşturulan bir haritadır ve ölçümler ile difüzyon kısıtlılığı doğrulanması yapılmasına imkan sağlar. DAG'de hiperintens izlenen lezyonların ADC haritasında hipointens izlenmesi difüzyon kısıtlanmasını gösterir (11). Lenfoma, hücresel içeriğinin fazla olması nedeniyle adenokarsinoma nazaran daha belirgin difüzyon kısıtlanması gösterir ve ADC değeri daha düşüktür (11,13). Bizim olgumuzda da, kitle, ADC değeri $1,3 \times 10^{-3} \text{ mm}^2/\text{saniye}$ ile hafif difüzyon kısıtlanması göstermekteydi. Bizim olgumuzda, BT'de duvar kalınlaşmaları ile karakterize duodenal darlık tespit edildi.

Benign-malign ayrımı için MRG yapıldı. MRG ve DAG ile malign kitle ön tanısı rahatlıkla konuldu. Ancak, lenfoma ve adenokarsinom ayırıcı tanısında zorlanıldı. Bizim olgumuzda, adenokarsinomu ilk planda düşündürecek en önemli bulgu, difüzyon kısıtlanması olması ancak, ADC değerinin lenfomada beklenen değerlerden daha yüksek olmasıydı. DAG'de tespit edilen difüzyon kısıtlanması gösteren milimetrik lenf nodları nedeniyle operasyon sırasında bu lokalizasyondaki lenf nodları da rezeke edildi. Bu nedenle, Çölyak hastalarında kitleyi değerlendirirken ayrıntılı inceleme yapılmalı ve DAG mutlaka MRG tetkikine eklenmelidir. Operasyon öncesi ayrıntılı radyolojik inceleme, hastaya yaklaşım ve operasyonunun planmasında oldukça yol göstericidir.

Çölyak hastalığında, tümör gelişim riski yüksek olduğu için, endoskopik tetkiklerin yanı sıra BT ve MRG gibi non-invazif görüntüleme yöntemlerinin kullanılması erken tanıda önemlidir. Maligniteye bağlı darlık ve benign darlık ayırıcı tanısında ve kitle karakterizasyonunda, MRG'nin önemli bir rolü vardır. Birlikte DAG tetkikinin yapılması, doğru tanı etkinliğini artırmaktadır.

Etik

Hasta Onayı: Hastadan bilgilendirilmiş onam alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Editörler kurulu ve editörler kurulu dışında olan kişiler tarafından değerlendirilmiştir.

Yazarlık Katkıları

Konsept: F.K., A.S.O., Y.B. Dizayn: F.K., A.S.O., Y.B. Veri Toplama veya İşleme: F.K., A.S.O., Y.B. Analiz veya Yorumlama: F.K., A.S.O., Y.B. Literatür Arama: F.K., A.S.O., Y.B. Yazan: F.K.

Çıkar Çatışması: Yazarlar tarafından çıkar çatışması bildirilmemiştir.

Finansal Destek: Yazarlar tarafından finansal destek almadıkları bildirilmiştir.

Kaynaklar

1. Spijkerman M, Tan IL, Kolkman JJ, et al. A large variety of clinical features and concomitant disorders in celiac disease - A cohort study in the Netherlands. *Dig Liver Dis* 2016;48:499-505.
2. Rampertab SD, Forde KA, Green PH. Small bowel neoplasia in coeliac disease. *Gut* 2003;52:1211-4.
3. Freeman HJ. Malignancy in adult celiac disease. *World J Gastroenterol* 2009;15:1581-3.
4. Gujral N, Freeman HJ, Thomson AB. Celiac disease: prevalence, diagnosis, pathogenesis and treatment. *World J Gastroenterol* 2012;18:6036-59.
5. Culliford A, Daly J, Diamond B, Rubin M, Green PH. The value of wireless capsule endoscopy in patients with complicated celiac disease. *Gastrointest Endosc* 2005;62:55-61.
6. Askling J, Linet M, Gridley G, Halstensen TS, Ekström K, Ekblom A. Cancer incidence in a population-based cohort of individuals hospitalized with celiac disease or dermatitis herpetiformis. *Gastroenterology* 2002;123:1428-35.
7. Green PHR, Stavropoulos SN, Panagi SG, et al. Characteristics of adult celiac disease in the USA: results of a national survey. *Am J Gastroenterol* 2001;96:126-31.
8. Ines MM, Ennaifer R, Omrani S, Ahlem LB, Oujji R, Hendaoui L. Computed Tomographic presentation of obstructive jejunal adenocarcinoma associated with celiac disease and incomplete intestinal malrotation. *Int J Surg Case Rep* 2016;18:9-11.
9. Fallah J, Afari ME, Cordova AC, Olszewski AJ, Minami T. Small Bowel Adenocarcinoma as the Cause of Gastrointestinal Bleeding in Celiac Disease: A Rare Malignancy in a Common Disease. *Case Rep Oncol Med* 2015;2015:865383.
10. Dusunceli Atman E, Erden A, Ustuner E, Uzun C, Bektas M. MRI Findings of Intrinsic and Extrinsic Duodenal Abnormalities and Variations. *Korean J Radiol* 2015;16:1240-52.
11. Lee NK, Kim S, Seo HI, Kim DU, Woo HY, Kim TU. Diffusion-weighted MR imaging for the differentiation of malignant from benign strictures in the periampullary region. *Eur Radiol* 2013;23:1288-96.
12. Masselli G, Colaiacomo MC, Marcelli G, et al. MRI of the small-bowel: how to differentiate primary neoplasms and mimickers. *Br J Radiol* 2012;85:824-37.
13. Lin C, Luciani A, Itti E, et al. Whole-body diffusion magnetic resonance imaging in the assessment of lymphoma. *Cancer Imaging* 2012;12:403-8.