Olgu Sunumu/*Case Report*

DOI: 10.5578/ced.20229819 • *J Pediatr Inf 2022;16(2):110-113*

Pandemide Gerçek Tanı Koyma Zorlukları: Bir Olgu Sunumu

Diagnostic Challenges During Pandemic: A Case Report

Emel Çelebi Çongur[1](İD), Zuhal Bayramoğlu[2](İD), Gül Özçelik[3](İD), Betül Sözeri[4](İD), Ayşe Nur Kardaş[5](İD), Ayşe Şahin[5](İD), Nazan Dalgıç[1](İD)

[1] *Sağlık Bilimleri Üniversitesi Şişli Hamidiye Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Enfeksiyon Kliniği, İstanbul, Türkiye*
[2] *İstanbul Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji Anabilim Dalı, İstanbul, Türkiye*
[3] *Sağlık Bilimleri Üniversitesi Şişli Hamidiye Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Nefroloji Kliniği, İstanbul, Türkiye*
[4] *Sağlık Bilimleri Üniversitesi Ümraniye Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Romatolojisi Kliniği, İstanbul, Türkiye*
[5] *Sağlık Bilimleri Üniversitesi Şişli Hamidiye Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Kliniği, İstanbul, Türkiye*

Makale atıfı: Çelebi Çongur E, Bayramoğlu Z, Özçelik G, Sözeri B, Kardaş AN, Şahin A ve ark. Pandemide gerçek tanı koyma zorlukları: Bir olgu sunumu. J Pediatr Inf 2022;16(2):110-113.

Öz

Kist hidatik *Echinococcus granulosus* isimli parazitin neden olduğu, hayvan yetiştirilen bölgelerde endemik olarak görülen bir enfeksiyondur. Pandemi sürecinde hekimlerin üzerindeki ağır yük nedeniyle, hastalara ayırıcı tanı yapılması aşamasında COVID-19 harici hastalıklar biraz arka plana itilmiştir. Hidatik kist %1-4 oranında kemikte yerleşir. Kemikte yerleşen kiste ait semptomlar ve görüntüleme özellikleri özgün değildir, bu nedenle ekstremite lezyonlarında ayırıcı tanı yapılırken akla gelmesi daha az olasıdır. Özgül klinik tablonun olmaması ve indirekt hemaglütinasyon testinin sensitivitesinin yüksek olmaması tanıda radyolojik değerlendirmeleri ön plana çıkartmaktadır. Bu olgu sunumunda, bacakta ödem, ağrı ve ateş ile hastaneye başvuran, çocuklarda multisistem enflamatuvar sendrom (MIS-C) tanısı aldıktan sonra akciğer ve kemik tutulumlu kist hidatik tanısı alan bir hastamızın tanı ve tedavi sürecini paylaştık.

Anahtar Kelimeler: COVID-19, ekinokokkozis, hidatik kist, pandemi, tanı zorlukları

Abstract

Hydatid cyst is an infection caused by the parasite *Echinococcus granulosus*, which is seen endemic in animal husbandry areas. Due to the heavy burden on physicians during the pandemics, diseases other than COVID-19 took a back seat during the differential diagnosis of patients. Hydatid cyst is located in the bone at a rate of 1-4%. The symptoms and imaging features of the cyst located in the bone are not specific, thus they are less likely to be considered in the differential diagnosis of extremity lesions. The absence of a specific clinical picture and the lack of high sensitivity of the indirect hemagglutination test bring radiological evaluations to the fore in diagnosis. In this case report, we shared diagnostic and treatment process of a patient-who was first admitted to the hospital with edema, pain and fever in the leg, was diagnosed with multisystem inflammatory syndrome in children (MIS-C) later diagnosed hydatid cyst with lung and bone involvement.

Keywords: COVID-19, echinococcosis, hydatid cyst, diagnostic challenges, pandemic

Giriş

2019'un sonunda Çin'in Wuhan şehrinde ortaya çıkan SARS-CoV-2 hızla dünyaya yayılmış ve Mart 2020'de Dünya Sağlık Örgütü tarafından pandemi olarak ilan edilmiştir. İki yıldan uzun süredir devam eden bu pandemi sürecinde Koronavirüs hastalığı-2019 (COVID-19) harici hastalıklar arka planda kalmıştır. Acil servislere ateşle başvuran birçok çocuk

Yazışma Adresi/Correspondence Address
Emel Çelebi Çongur
Şişli Hamidiye Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
Çocuk Enfeksiyon Kliniği,
İstanbul-Türkiye
E-mail: emelcelebi@gmail.com

Geliş Tarihi: 11.11.2021 **Kabul Tarihi:** 23.01.2022 **Çevrimiçi Yayın Tarihi:** 30.06.2022

©Telif Hakkı 2022 Çocuk Enfeksiyon Hastalıkları ve Bağışıklama Derneği.
Makale metnine www.cocukenfeksiyon.org web sayfasından ulaşılabilir.

hasta, bazen tetkikleri bile yapılmadan COVID-19 veya çocuklarda multisistemik enflamatuvar sendrom (MIS-C) açısından değerlendirilmek üzere çocuk enfeksiyon hekimine konsülte edilmektedir. Bu olgu sunumunda, MIS-C düşünülüp, tedavisi başlanarak hastanemizin yoğun bakımına transfer edilen bir olgunun tanı sürecini paylaştık.

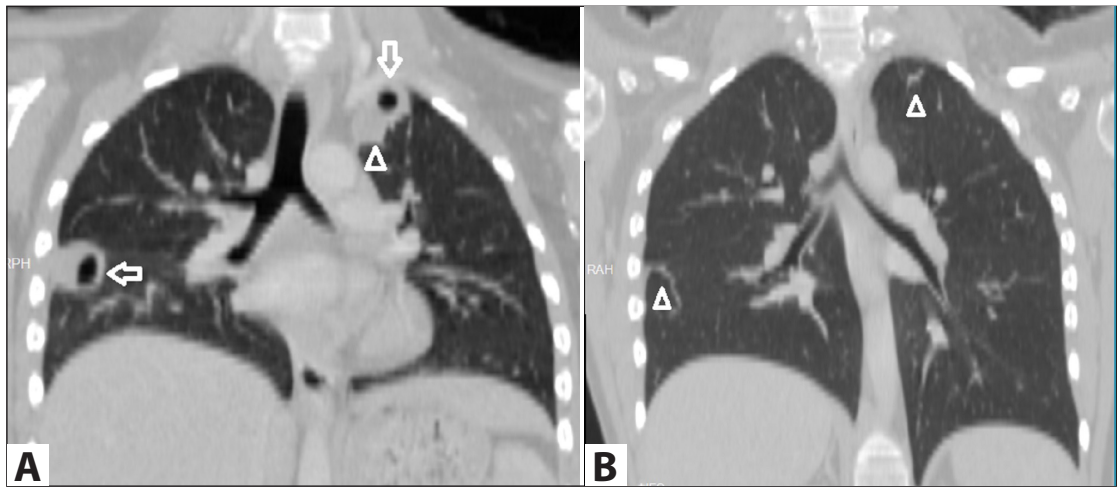
Olgu Sunumu

13 yaş kız hasta sol bacakta ağrı ve 39°C'ye ulaşan ateş şikayeti ile başvurduğu dış merkezde çekilen pelvik manyetik rezonans görüntülemesinde (MRG) sol gluteal ve iliak kaslarda ödem ve akciğer BT'de COVID-19 pnömonisi ile uyumlu bulgular saptanması üzerine MIS-C ön tanısı ile hastanemizin çocuk yoğun bakım ünitesine kabul edildi.

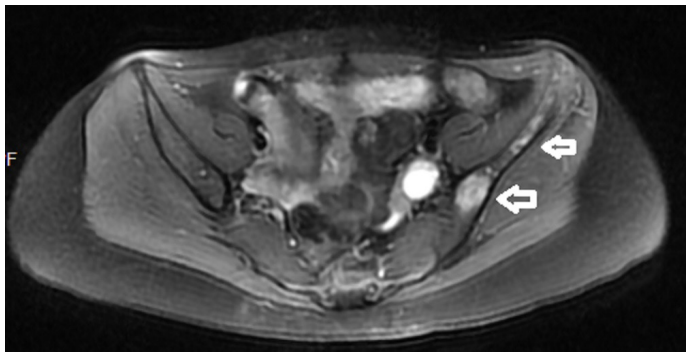
Hastanın sol kalça ve bacakta üç gündür olan şiddetli ağrı, ödem ve hareket kısıtlılığı dışında sistem muayeneleri normaldi. Ateşi 39°C'ydi. Tetkikleri şu şekildeydi: lökosit 9370/mm^3, nötrofil 8320/mm^3, lenfosit 440/mm^3, trombosit 177.000/mm^3, ESR 81 mm/saat (normal= 2-20), CRP 252 mg/L (normal< 5), prokalsitonin> 100 ug/L (normal< 0.5) , CK 29.800 U/L (normal< 192), ferritin 1322 ug/L (normal< 68), LDH= 890 U/L (normal< 300), d-dimer 12.540 ug/L (normal< 500) ve troponin 0.033 mcg/L (normal< 0.014) idi. İki defa alınan COVID-19 PCR ve COVID IgM-IgG negatif sonuçlandı. Geldiği merkezde çekilen pelvik MRG radyologlarımızca tekrar yorumlatıldı, sol gluteal kas grubunda, sol iliak kaslarda ve tendonlarda ödeme ek olarak fasyalar arasında sıvı intensiteleri olduğu belirtildi. Kist lehine bulgu saptanmadı. Tendonlarda ödem ve fasyalar arasında sıvı intensiteleri vardı. Hastaya geldiği merkezde başlanan seftriakson, vankomisin ve klaritromisin tedavilerine devam edildi. Hematoloji ve romatoloji ile konsülte edilen hastaya makrofaj aktivasyon sendromu düşünülerek 5 mg/kg metilprednizolon, 1 gr/kg intravenöz immunoglobulin (IVIG) ve enoksaparin (1 x 60 mg subkutan) tedavisi başlandı. Ekokardiyografi normaldi. Hastanın ilk başvurusunda alınan kan kültürde *Staphylococcus aureus* üremesi oldu. Hasta yatışının sekizinci gününde genel pediyatri servisine transfer edildi. Romatolojik hastalıklar açısından yapılan tetkiklerinde patolojik bulgu yoktu. Antibiyotikleri 10 güne tamamlanarak kesildi.

Yatışının 12. gününde çekilen toraks BT'de her iki akciğerde, en büyüğü 22 x 20 mm boyutlarında olan içerisinde milimetrik kavitasyonlar olan çok sayıda sıvı dansitesinde kistler izlendi, mediastinal veya hiler lenfadenopati yoktu (Şekil 1). Eski BT ile kıyaslandığında lezyon sayısının aynı olduğu ancak lezyonların boyutlarının-konsolide özelliklerinin azaldığı; hava-sıvı seviyelenmelerinin ve kaviter özelliklerinin arttığı görüldü. Ayırıcı tanıda septik emboli veya vaskülitlerin düşünüldü. Septik emboli açısından yapılan kontrastlı toraks BT anjiyoda intravasküler patoloji görülmedi. Kontrol pelvik MRG'de ise solda iliak kemikte T2A incelemede hiperintens lobule konturlu infiltratif lezyon ve periosta komşu kas grubunda heterojen kontrast tutulumu gösteren sinyal değişiklik alanı vardı (Şekil 2). Çekilen kemik sintigrafisi normal olarak değerlendirildi. Tüberküloz ve immünolojik açısından yapılan tetkikleri normaldi. Göğüs hastalıkları konseyine danışılan hastaya bronkoskopi yapıldı ve normal sonuçlandı. Bronkoalveoler lavaj örneklerinden gönderilen tetkiklerde özellik yoktu.

Hastanın yatışının 24. gününde nefes almakla sağ tarafta ağrı tariflemesi üzerine çekilen toraks BT'sinde kistlerin boyutlarında minimal artış vardı. BT ve pelvik MRG görüntüleri dış merkezdeki pediyatrik radyoloji hekimi tarafından tekrar yorumlandı. Hastanın toraks BT'si "Her iki akciğerde tüm loblarda dağınık yerleşimli içi sıvı dolu ince cidarlı kistler mevcut, bazı



Şekil 1. A. Kontrastlı toraks BT koronal reformat görüntülerde hava sıvı seviyelenmesi içeren kistler (kapalı ok) ve pür kistik naturde (ok başı) her iki akciğerde dağılmış pulmoner intraparenkimal hidatik kist ile uyumlu lezyonlar. **B.** İki ay albendazol tedavisi sonrası incelemelerde kistik lezyonların lojunda rezidüel kavite imajı izlenmemiş olup sekel lineer atelektaziler izlenmektedir (ok).



Şekil 2. Pelvik MRG tetkikinde sol iliak kemikte multifokal jeografik konturlu hiperintens sinyal özelliği gösteren ayrıca komşuluğundaki kas gruplarında ödemin eşlik ettiği, kontrast tutmayan lezyonlar intraosseöz kist lehinde değerlendirilmiştir.

kist lümenlerinde bronşa açılmaya bağlı olabilecek hava-sıvı seviyesi var. Akciğerde birkaç adet milimetrik boyutlu sekel hava kistleri görülüyor." olarak yorumlandı. Kontrol pelvik MRG ise "sol iliak kanat supraasetabular alanda medullotrabekuler ve komşuluğunda periost ve gluteal kas gruplarında mikroabse formasyonları izleniyor. Bu görüntülemeler birlikte değerlendirildiğinde yaygın pulmoner tutulum ve iliak kemik kanat tutulumu ile seyreden hidatik kist hastalığı düşünülmüştür" olarak tarafımıza bildirildi. Bu yorum üzerine indirekt hemaglütinasyon testi gönderilerek, albendazol (15 mg/kg/gün, günde iki kere oral) tedavisi başlandı. Indirek hemaglütinasyon testi negatif sonuçlandı. Ekinokokun merkezi sinir sistemi tutulumu açısından bakılan kranial MRG'de ve gastrointestinal sistem tutulumu açısından bakılan abdomen MRG ve BT'de özellik saptanmadı.

Çocuk romatoloji bölümüne danışılan hastanın klinik sürecinin kist hidatik rüptürüne bağlı gelişen makrofaj aktivasyon sendromuyla, pelvik kaslardaki ödeminse sekonder piyomiyozitle uyumlu olduğu ve düşük doz steroid tedavisinin devam edilmesini önerildi. İmmundisregulasyon gen tetkiklerinde mutasyon görülmedi.

Tedavinin birinci ayında çekilen toraks BT'de akciğerdeki lezyonlarda belirgin küçülme görüldü. Lezyonların medikal tedaviye yanıt vermesi nedeniyle çocuk cerrahi ve ortopedi bölümleri tarafından eksizyon uygun görülmedi. Hasta oral albendazol ve oral metilprednizolon (0.5 mg/kg) tedavisi ile taburcu edildi. Metilprenizolon tedavisi dördüncü ayınca kesildi. Albendazol tedavisi hala devam eden hastanın, tedavinin ikinci ayında yapılan görüntülemelerinde; akciğer lezyonlarının tedaviye tama yakın yanıtlı olduğu, sol iliak kemikteki lezyonda ise sıvı sinyal intensitesinin azaldığı ve lezyon konturlarında retraksiyon olduğu izlenmesi üzerine kemik lezyonu da yanıtlı olarak değerlendirildi.

Bu olgu sunumu için aileden sözlü ve yazılı onam alınmıştır.

Tartışma

Kist hidatik; *E. granulosus* isimli parazitin neden olduğu, dünyada hayvan yetiştirilen bölgelerde endemik olarak görülen bir enfeksiyondur. Köpekler ve diğer etçil hayvanlar kesin konakçı iken koyunlar, sığırlar, atlar ve keçiler ara konaklardır. İnsanlar tesadüfi olarak enfekte olurlar ve son konaktır. Erişkinlerde ekinokok en sık karaciğeri tutsa da çocuklarda akciğer tutulumu erişkinlere göre daha sık görülmektedir (1). Dalak, kalp ve beyin gibi diğer organlar nadiren etkilenir, kemik ve yumuşak dokuyu tutulumu ise tüm olguların %1-5'idir (2).

Kemikte hidatik kistte semptomlar ve görüntüleme özellikleri özgün değildir, bizim hastamızdaki gibi ekstremite lezyonlarında ayırıcı tanı yapılırken akla gelmesi daha az olasıdır. Kemikte yerleşen ekinok kisti yıllarca sessiz kalabilir. Belirti vermesi ise genellikle patolojik fraktür, nörolojik bir defisit veya bir enfeksiyonun ortaya çıkmasıyla olur (3). Ayrıca ekinokok kırsalda yaşamayan hekimlerce biraz ihmal edilen bir tanıdır. Bu nedenlerle ekinokok tanısı geç akla gelir ve kesin tanı genellikle cerrahi sonrası konulur.

Bizim hastamız pandemi sürecinde bacakta ağrı, şişlik ve yüksek ateş şikayetiyle başvurmuş ve bu süreçte COVID-19 geçirmemiş olmasına rağmen MIS-C ön tanısı konularak hastanemize sevk edilmiştir. İlk geldiği merkezde çekilen pulmoner BT'de çoklu lezyonlar yanlışlıkla COVID-19 lehine yorumlanmış ve bu da MIS-C tanısını güçlendirmiştir. COVID-19 ilişkili pulmoner lezyonlarda çok düşük insidansla kaviteleşme bildirilmiştir (4). Aynı zamanda çekilen pelvik kemikleri ve kasları değerlendiren MRG'deyse ödem görülmüş, fakat kist lehine bulgu görülmemiş, tablo miyozit lehine yorumlanmıştır.

Hidatik kistlerde spesifik klinik tablonun olmaması ve indirekt hemaglutinasyon testinin sensitivitesinin %60 seviyesinde kalması tanıda radyolojik değerlendirmeleri ön plana çıkartmaktadır (5). Radyolojik olarak da ekinokokkozis tanısını koymak zorlayıcı olabilir. Akciğeri tutan hidatik kist hastalığında BT en verimli radyolojik yöntem olsa da lezyonlar bazen başka hastalıklarla karışabilir. Literatürde tümör veya tüberküloz düşünülüp histolojik incelemeler sonucunda tanısı değişen çok sayıda olgu vardır (6-8). Bizim olgumuzda da ilk pulmoner BT'de çok sayıda buzlu cam görüntüsüne rastlanmış ve bu lezyonlar viral pnömoni veya COVID-19 pnömonisine benzetilmiştir. Hidatik kistlerin etrafında buzlu cam veya konsolidasyon varlığı kist etrafında sekonder pulmoner enfeksiyon, kist büyümesine bağlı alveolar hemoraji veya kist rüptürüne sekonder bulgular olarak görülebilmektedir (5,9). Ancak asıl patern ile sekonder bulgular birbirinden dikkatlice ayırt edilmelidir. Hastanın COVID-19'un en yüksek oranda görüldüğü dönemde hastaneye başvurmuş olması, biz klinisyenleri

daha çok COVID-19 ve komplikasyonlarına yöneltmiştir. Şubat 2021'de yayınlanan bir çalışmada pandemi döneminde tüberküloz tanısı konulan hasta sayısında %43 oranında düşme yaşandığını ve tanıda önemli gecikmeler yaşandığını göstermiştir (10). Bu açıdan literatür taraması yapıldığında COVID-19 pandemisi sürecinde yanlış tanı veya gecikmeli tanı alan olgu sunumları ile karşılaşılmaktadır (11,12). Bu gecikme ve yanlış tanıların sebebi hem hastaların hafif şikayetlerle hastaneye gelmek istememesi ve klinik ağırlaştığında sağlık kuruluna başvuru yapması hem de klinisyenlerin öncelikle COVID-19 tanısına veya COVID-19'u ekarte etmeye odaklanması olabilir.

Hidatik kist %1-4 oranında kemikte yerleşir. En sık yerleşim yerleri sırasıyla; omurga, pelvis ve uzun kemiklerdir. Yavaş büyümelerinden dolayı genellikle geç yaşta tanı alırlar, çocukluk çağında nadir karşılaşılır. Kemik tutulumunda sistematik bir tedavi algoritması henüz mevcut olmasa da tedavi seçenekleri cerrahi eksizyon ve takiben albendazol kullanımından oluşur (13). Bazı çalışmalarda ise albendazol ile prazikuantel veya nitazoksanid kombine olarak kullanılmıştır (14,15). Albendazol kullanımının süresi için kesin bir protokol yoktur. Bizim hastamızda albendazol tedavisine radyolojik olarak yanıt alındığı görüldüğü için çocuk cerrahisi ve ortopedi hekimleri tarafından cerrahi eksizyon önerilmemiştir. Literatüre bakıldığında, cerrahi tedavinin mümkün olmadığı veya yüksek risk içerdiği bazı durumlarda sadece medikal tedavi ile izlenen olgular makalelerde yer bulmaktadır (13,14).

Sonuç

Pandemide hekimlerin üzerine yüklenen COVID-19 hastasını tanıyamama ve tedavi edememe endişesi, klinisyenlerin hasta değerlendirirken COVID-19 üzerine daha çok odaklanmasını da beraberinde getirmiştir. Bizim hastamızın COVID-19 teması olmamasına, iki kere alınan COVID-19 PCR ve antikor sonuçları negatif bulunmasına rağmen hasta MIS-C olarak kabul edilmiş ve tedavisi başlanmıştır. Pandemi döneminde COVID-19 açısından uyanık olmamız gerekse de diğer hastalıkların da ayırıcı tanıda mutlaka düşünülmesi gerektiğini unutmamalıyız.

Hasta Onamı: Hasta onamı alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Dış bağımsız.

Yazar Katkıları: Fikir ve Tasarım - EÇÇ; Dizayn - ND; Denetleme - AŞ; Kaynaklar - ZB; Veri toplanması ve/veya işlenmesi - ANK; Analiz ve/veya yorum - EÇÇ, GÖ; Literatür taraması - AŞ; Yazıyı yazan - ANK, EÇÇ, ZB; Eleştirel İnceleme - ND.

Çıkar Çatışması: Yazarlar çıkar çatışması bildirmemişlerdir.

Finansal Destek: Yazarlar bu çalışma için finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

Kaynaklar

1. *Kanat F, Turk E, Aribas OK. Comparison of pulmonary hydatid cysts in children and adults. ANZ J Surg 2004;74(10):885-9.* ***[CrossRef]***
2. *García-Díez AI, Ros Mendoza LH, Villacampa VM, Cózar M, Fuertes MI. MRI evaluation of soft tissue hydatid disease. Eur Radiol 2000;10(3):462-6.* ***[CrossRef]***
3. *Zlitni M, Ezzaouia K, Lebib H, Karray M, Kooli M, Mestiri M. Hydatid cyst of bone: Diagnosis and treatment. World J Surg 2001;25(1):75-82.* ***[CrossRef]***
4. *Selvaraj V, Dapaah-Afriyie K. Lung cavitation due to COVID-19 pneumonia. BMJ Case Rep 2020;13(7):e237245.* ***[CrossRef]***
5. *Çobanoğlu U, Aşker S, Mergan D, Sayır F, Bilici S, Melek M. Diagnostic dilemma in hydatid cysts: Tumor-mimicking hydatid cysts. Turk Thorac J 2015;16(4):180-4.* ***[CrossRef]***
6. *Mitrovic M, Tadic B, Kovac J, Grubor N, Milosavljevic V, Jankovic A, et al. Pancreatic hydatid cyst misdiagnosed as mucinous cystadenoma: CT and MRI findings. Medicina (Kaunas) 2020;56(3):124.* ***[CrossRef]***
7. *Gadelkareem RA, Elqady AA, Abd-Elshafy SK, Imam H, Abolella HA. Isolated renal hydatid cyst misdiagnosed and operated as a cystic renal tumor. Med Princ Pract 2018;27(3):297-300.* ***[CrossRef]***
8. *Zhang Q, Huang TM, Li BZ, Li ZL, Liao KX. [Misdiagnosis of pulmonary hydatid cyst rupture: Report of 38 cases] Zhonghua Jie He He Hu Xi Za Zhi 2003;26(8):474-6.*
9. *Garg MK, Sharma M, Gulati A, Gorsi U, Aggarwal AN, Agarwal R, et al. Imaging in pulmonary hydatid cysts. World J Radiol 2016;8(6):581-7.* ***[CrossRef]***
10. *Di Gennaro F, Gualano G, Timelli L, Vittozzi P, Di Bari V, Libertone R, et al. Increase in tuberculosis diagnostic delay during first wave of the covıd-19 pandemic: Data from an Italian Infectious Disease Referral Hospital. Antibiotics (Basel) 2021;10(3):272.* ***[CrossRef]***
11. *Novak CB, Scheeler VM, Aucott JN. Lyme disease in the era of COVID-19: A delayed diagnosis and risk for complications. Case Rep Infect Dis 2021;2021:6699536.* ***[CrossRef]***
12. *Yousefzai R, Bhimaraj A. Misdiagnosis in the COVID-19 era: When zebras are everywhere, don't forget the horses. JACC Case Rep 2020;2(10):1614-9.* ***[CrossRef]***
13. *Cattaneo L, Manciulli T, Cretu CM, Giordani MT, Angheben A, et al. Cystic Echinococcosis of the bone: A European Multicenter Study. Am J Trop Med Hyg 2019;100(3):617-21.* ***[CrossRef]***
14. *Monge-Maillo B, Olmedo Samperio M, Pérez-Molina JA, Norman F, Mejía CR, Tojeiro SC, et al. Osseous cystic Echinococcosis: A case series study at a referral unit in Spain. PLoS Negl Trop Dis 2019;13(2):e0007006.* ***[CrossRef]***
15. *Perez-Molina JA, Diaz-Menendez M, Gallego JI, Norman F, Monge-Maillo B, Ayala AP, et al. Evaluation of nitazoxanide for the treatment of disseminated cystic Echinococcosis: Report of five cases and literature review. Am J Trop Med Hyg 84:351-6.* ***[CrossRef]***