

Kronik dakriyosistit bulgusu veren primer lakrimal kese lenfoması

Yusuf Uysal (*), F.Mehmet Mutlu (*), Mükerrerem Safalı (**), Fatih Örs (***)

Özet

Göz yaşı akım sistemi birçok nedenle kesintiye uğrayabilir. Bu nedenlerden birisi de lakrimal kese tümörüdür. Olgumuza kronik dakriyosistit nedeniyle dakriyosistorinostomi ameliyatı uygulandı. Ameliyat sırasında kese mukozasının normalden kalın olduğu görüldü ve biyopsi alındı. Patolojik inceleme sonucu olgu ektranodal marginal zon B hücreli lenfoma (MALT lenfoma) tanısı aldı. Sistemik lenfoma bulgusuna rastlanmayan hasta 42 Gy radyoterapi uygulanarak tedavi edildi. Bu olgu lenfomanın ilk belirtisinin kronik dakriyosistit olabileceğini göstermiştir. Kronik dakriyosistitli hastaları değerlendirirken bu durum dikkate alınmalıdır. **Anahtar kelimeler:** Dakriyosistit, epifora, lakrimal kese tümörü, lenfoma

Summary

Lacrimal sac lymphoma simulating chronic dacryocystitis
Lacrimal drainage system can be obstructed by many reasons. One of the reasons of this obstruction is lacrimal sac tumor. Dacryocystorhinostomy was performed to our patient because of chronic dacryocystitis. During surgery it was noticed that lacrimal sac mucosa was thicker than its usual thickness, and biopsy was taken. Pathologic evaluation of the specimen revealed extranodal marginal zone B-cell lymphoma (MALT lymphoma). There was no evidence of systemic lymphoma, and the patient was treated with 42 Gy irradiation. This case demonstrated that chronic dacryocystitis may be the first sign of lymphoma. This rare condition should be taken into consideration in evaluating patients with chronic dacryocystitis.

Key words: Dacryocystitis, epiphora, lacrimal sac tumor, lymphoma

* GATF Göz Hastalıkları AD

** GATF Patoloji AD

***GATF Radyoloji AD

Ayrı basım isteği: Dr. Yusuf Uysal, GATF Göz Hastalıkları AD, Etik-06018, Ankara

E-mail: yuysal002@yahoo.com

Makalenin geliş tarihi: 05.12.2006

Kabul tarihi: 08.05.2007

Giriş

Göz yaşı drenaj sistemi enfeksiyon, inflamasyon, travma, doğumsal bozukluklar ve tümörler nedeniyle kesintiye uğrayabilir (1). Göz yaşı akımını etkileyen nedenler arasında göz yaşı kesesi tümörleri nadir görülür. Yassı hücreli papillom, yassı hücreli karsinom, fibröz histiyositoma, lenfoma ve malign melanom en sık görülen tümörlerdir (2). Bunların sadece %8'ini lenfoma oluşturmaktadır (2,3).

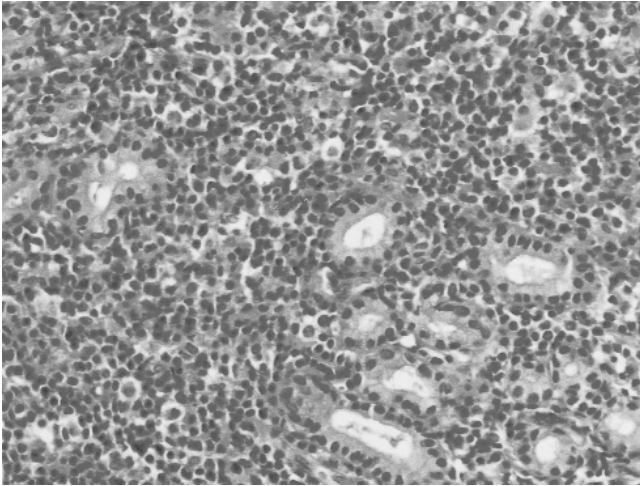
Göz yaşı kesesi lenfoması kendini epifora, dakriyosistit veya kese bölgesinde şişlik ile gösterebilir (4,5). Hastalar genellikle dakriyosistit gibi tedavi edildiklerinden, tanı ve uygun tedavi gecikir. Bu çalışmada ilk belirtisi kronik dakriyosistit olan izole ektranodal marginal zon B hücreli lenfoma (MALT lenfoma) (WHO) olgusunun klinik ve histopatolojik özellikleri sunulmuştur.

Olgu Sunumu

Elli dokuz yaşındaki bayan hasta, sağ gözünde yaşarma ve çapaklanma yakınması ile kliniğimize başvurdu. Bu şikayetlerinin 2 ay önce başladığını belirtiyordu. Hastanın bu yakınmalarının dışında oftalmik ve sistemik şikayeti yoktu. Görme keskinliği her iki gözde tamdı. Ön segment ve fundus normal görünümdeydi. Sağda epifora ve hafif mukopürülan sekresyon saptandı. Yapılan irrigasyonda nazolakrimal kanalın (NLK) kapalı olduğu anlaşıldı. Diğer gözde ise NLK açıktı. Hastaya dakriyosistorinostomi (DSR) ameliyatı uygulandı. Cerrahi esnasında kese mukozasının belirgin olarak kalın ve gri renkli olduğunun görülmesi üzerine buradan 3x3 mm boyutlarında doku örneği alındı. Ameliyat planlandığı şekilde kese ve burun mukozasının

dan oluşturulan alt ve üst flepler dikilerek komplikasyonsuz olarak tamamlandı.

Biyopsi örneğinin histopatolojik olarak incelenmesi sonucunda göz yaşı kesesi duvarında tümöral infiltrasyon görüldü. Tümörü, normal bir lenfositten biraz daha büyük boyutlu, hafif derecede nükleer kontür düzensizliği ve yer yer plasmositoid diferansiyasyon gösteren atipik lenfoid hücreler oluşturmaktaydı (Şekil 1a). Bu atipik lenfositlerin gland yapılarını yer yer infiltre ettiği dikkati çekmekteydi (Şekil 1b). İmmünohistokimyasal olarak tümör hücrelerinin CD20 (+) (Şekil 1c), CD79a (+), CD5 (-), CD23 (-) ve Cyclin D1 (-) olduğu görüldü. Ayrıca bu hücrelerde monoklonalite lehine bir bulgu olan lambda (λ) hafif zincir restriksiyonu izleniyordu. Klinik olarak lenfadenopatisi olmayan olguda tanımlanan bulgular ışığında tümörün WHO sınıflamasına göre "ekstranodal marginal zon B hücreli lenfoma (MALT lenfoma)" olarak tanımlanan, düşük dereceli Hodgkin-dışı bir lenfoma olduğu sonucuna varıldı.

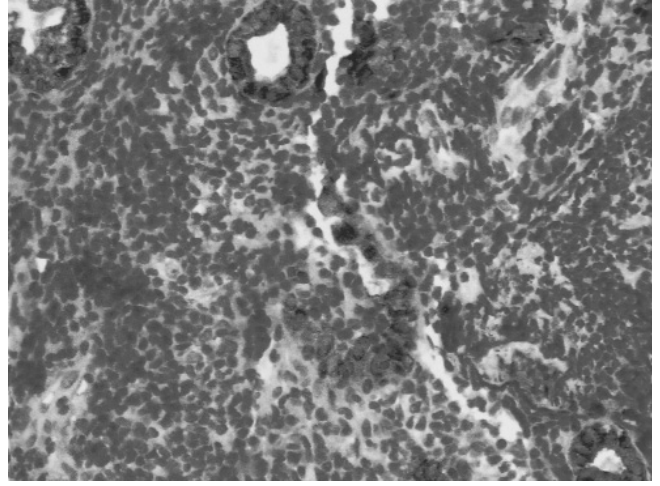


Şekil 1a. Göz yaşı kesesi duvarına ait örneklerde gland yapıları arasında, yoğun, atipik lenfositlerden oluşan infiltrasyon izlenmektedir (H&E; X100)

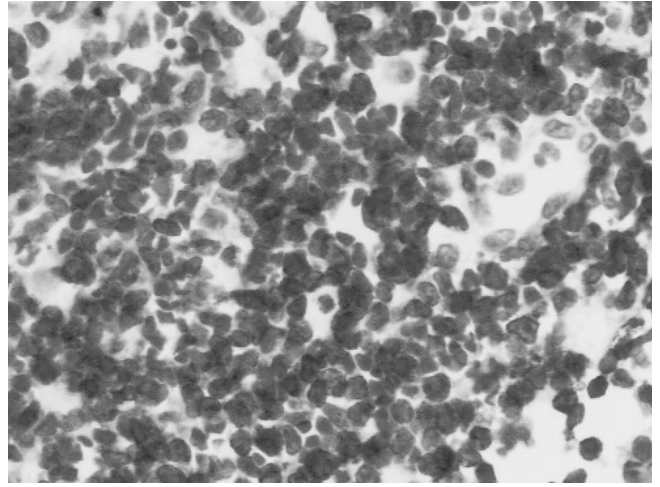
Ameliyat sonrasında çekilen orbital tomografide sağ lakrimal kese bölgesinde başlayan, kanal bölgesinde kemik yapıda incelmeye neden olan, sağ nazal boşluğa doğru uzanım gösteren ancak konkalarla sınırı ayırt edilemeyen, homojen kontrast tutan yumuşak doku kitle lezyonu izlendi (Şekil 2,3,4,5).

Kemik iliği aspirasyonu, toraks ve batin tomografisini de kapsayan hematolojik, biyokimyasal ve radyolojik araştırmada sistemik lenfoma bulgusu saptanmadı. Ann Arbor evreleme sistemine göre evre IE olduğu anlaşıldı.

Hastaya Co-60 cihazı ile, alanın üst sınırı sağ frontal sinüsün üstü, alt sınırı maksiller sinüsün altı, dış sınırı zigomatik arkusun laterali, iç sınırı sol orbitanın 0.5 cm mediyali olacak şekilde, korneanın $\frac{3}{4}$ 'ü korunarak 21



Şekil 1b. Pansitokeratinle işaretlenen kese duvarındaki gland yapılarını infiltre eden ve hasarlanmasına neden olan atipik lenfositler (İmmünohistokimya, Pansitokeratin; X100)

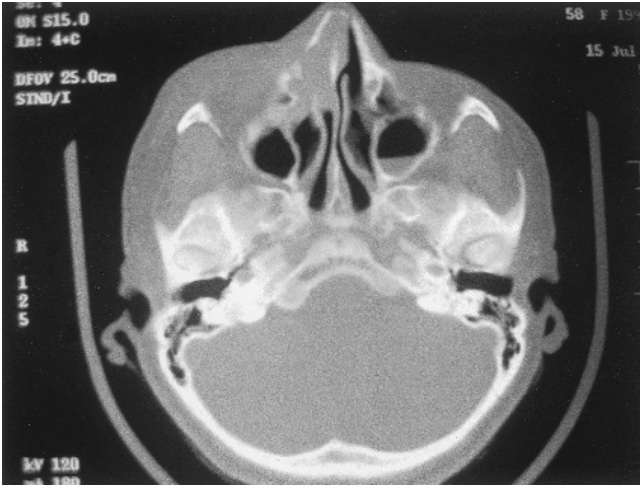


Şekil 1c. AntiCD20 ile işaretlenen atipik lenfositler (İmmünohistokimya, AntiCD20; X200)

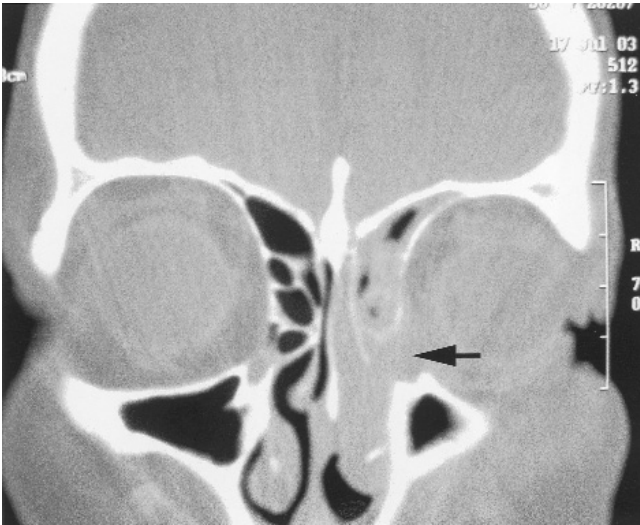


Şekil 2. Kontrastlı aksiyel orbita tomografisinde sağ nazal boşluğa uzanan, homojen kontrast tutan tümöral kitle lezyonu

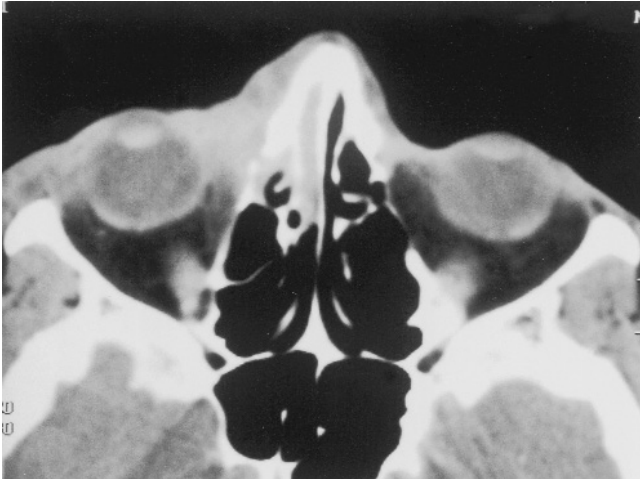
fraksiyonda toplam 42 Gy eksternal radyoterapi uygulandı. Sistemik kemoterapi uygulanmadı. DSR ve rad-



Şekil 3. Aksiyel kesitte sağda, nazal kemikte incelme ve düzensizliğe neden olan tümöral lezyon



Şekil 4. Koronal kesitte lakrimal kese bölgesi ve nazolakrimal kanal çevresini tutan, sınırları sağ nazal konkalardan ayırt edilemeyen lezyon. Ok işareti; DSR ameliyatı ile oluşturulan kemik pencere



Şekil 5. Opaklı aksiyel orbita bilgisayarlı tomografi kesitinde; sağda glop mediyal komşuluğunda, lakrimal keseye uyan bölgede homojen kontrast tutan yumuşak doku kitlesi izlenmektedir

yoterapiden sonra epifora ortadan kalktı. Yirmi yedi aylık takip sonunda yerel ve sistemik nüks gözlenmedi.

Tartışma

Göz yaşı kese tümörlerine bağlı belirti ve bulgular boşaltım sisteminde tıkanıklığa neden olan enfeksiyon, inflamasyon, travma gibi diğer nedenlerin belirtilerinden farklı değildir (1,6,7). Epifora, pürülan veya mukopürülan sekresyon, kese bölgesinde ödem, ağrılı veya ağrısız şişlik bulunabilir. Lakrimal kese lenfoması akut veya kronik dakriyosistit gelişimine neden olabilir (4,5). De Palma ve ark. akut dakriyosistit bulgusu ile gelen 72 yaşındaki bir hastaya antibiyotik tedavisi başladıklarını, tedaviye rağmen lezyonun büyümesi üzerine alınan lakrimal kese biyopsisinde primer, difüz, B hücreli Hodgkin-dışı lenfoma saptandığını bildirmişlerdir (8). Olgumuzda sağ gözde yaşarma ve çapaklanmadan oluşan kronik dakriyosistit öyküsü vardı ve yapılan irrigasyonda pasaj kapalı idi.

Lakrimal kese lenfomalı hastalarda lakrimal irrigasyonda kısmi ya da tam tıkanıklık görülebilir (9). Flanagan ve ark. kese tümörlerinde hemorajik epiforanın görülebileceğini bildirmişlerdir (3). Tümör nekrozuna bağlı olarak gelişen bu bulgu genellikle geç dönemde görülür. Birçok göz yaşı kesesi tümöründe kese bölgesinde şişlik geliştikten sonra tanı konmasına rağmen olgumuzda belirgin şişliğin olmaması hastalığın erken evredeyken yakalanmış olduğunu göstermektedir. Lenfoma, enfeksiyon ve inflamasyon kese duvarında diffüz kalınlaşmaya neden olur. Bunların ayırımında histopatolojik inceleme gereklidir.

Göz yaşı kesesi tümörleri kesenin kendisinden veya kese ve kanalın çevresindeki dokulardan kaynaklanabilir (10,11). Tanı ve tedavi aşamasında paranazal sinüslerin de bu açıdan değerlendirilmesi gerekir. Orbital tomografi ve manyetik rezonans görüntüleme lezyonun boyutlarını ortaya koyabilir.

Göz bölgesinde lenfoma genellikle orbita veya konjonktivadan kaynaklanır (12,13). Primer göz yaşı kesesi lenfoması oldukça nadir görülür. Sıklıkla sistemik lenfomayla birlikte izlenir. Göz yaşı kesesinin primer lenfoması genellikle B hücre kaynaklıdır. Olgumuzdaki lenfoma da B hücreliydi. Lakrimal keseyi infiltre eden cilt kaynaklı T hücreli lenfoma olguları da bildirilmiştir (9,14).

B hücreli lenfoma radyoterapi ve kemoterapiye duyarlıdır. Tedavi tek başına radyoterapi, kemoterapi veya ikisinin birlikte uygulanması ile sağlanır. Radyoterapi en fazla uygulanan tedavi modelidir (10). Hastalığın evresine ve sınıflamasına göre kemoterapi de tedaviye eklenebilir. Kaynaklarda uygulanan radyotera-

pinin 34.2-50 Gy ve sistemik kemoterapinin ise 1-8 kür olduğu bildirilmiştir (9,10,12). Evre IE lakrimal kese lenfoması olgularında radyoterapiden sonra kemoterapi uygulanıp uygulanmaması konusunda fikir birliği yoktur. Radyoterapinin olası yan etkilerinden kaçınmak için sadece kemoterapinin uygulandığı olgular da bildirilmiştir (8,12). Olgumuzdaki lenfomanın IE evresinde olması nedeniyle tedavi modeli olarak radyoterapi seçildi ve 42 Gy uygulandı. Yirmi yedi aylık takip sonunda nüks gözlenmedi.

Karesh ve ark. radyoterapi uygulanacak hastalara silikon tüp implantasyonunun tedavi sonrası oluşabilecek kanaliküler sistem stenozunu engelleyebileceğini bildirmişlerdir (4). Olgumuzda silikon tüp uygulanmasına rağmen stenoz gelişmedi. Bengener ve ark. birisi lenfositik lösemili diğeri sistemik lenfomalı iki olgularında kese infiltrasyonuna bağlı belirtilerin sistemik kemoterapi yanında dakriyosistorinostomi ve silikon tüp uygulaması ile giderildiğini bildirmişlerdir (5).

Evre IE lakrimal kese lenfomasında prognoz genellikle iyidir. Tek başına sistemik kemoterapi uygulanan bir olguda tedaviden 18 ay sonra yaygın uzak metastaz görülmüştür (8). Erickson ve ark. sadece göz yaşı akım sistemini tıkayan ve sistemik bulgusu olmayan 2 lenfoma olgusunda tedaviden 2 yıl sonra sistemik lenfoma geliştiğini bildirmişlerdir (15). Bu sonuçlar primer lakrimal kese lenfomasının tedaviden sonra da düzenli aralıklarla takip edilmesi gerektiğini göstermektedir.

Bu çalışmada edinsel epifora ile gelen hastada kese bölgesinde belirgin kitle görünümü olmasa bile etkenin lakrimal drenaj sistemini etkileyen tümöral bir lezyon olabileceği görülmüştür. Dakriyosistorinostomi sırasında kese bölgesinin epifora etiyojisi açısından incelenmesi ve gerekirse biyopsi alınması hayatı tehdit eden hastalıkların erken yakalanmasını sağlayabilir.

Kaynaklar

1. Jordan DR, Nerad JA. Diffuse large-cell lymphoma of the nasolacrimal sac. *Can J Ophthalmol* 1988; 23: 34-37.

2. Stefanyszyn MA, Hidayat AA, Pe'er JJ, Flanagan JC. Lacrimal sac tumors. *Ophthal Plast Reconstr Surg* 1994; 10: 169-184.
3. Flanagan JC, Stokes DP. Lacrimal sac tumors. *Ophthalmology* 1978; 85: 1282-1287.
4. Karesh JW, Perman KI, Rodrigues MM. Dacryocystitis associated with malignant lymphoma of the lacrimal sac. *Ophthalmology* 1993; 100: 669-673.
5. Bengener RS, Frueh BR. Lacrimal drainage obstruction from lacrimal sac infiltration by lymphocytic neoplasia. *Am J Ophthalmol* 1986; 101: 242-245.
6. Khetarpal S, Chan SY, Batch A, Kirkby GR. Previously undiagnosed lymphoma presenting as recurrent dacryocystitis. *Arch Ophthalmol* 1994; 112: 519-520.
7. Parmar DN, Rose GE. Management of lacrimal sac tumours. *Eye* 2003; 17: 599-606.
8. de Palma P, Ravalli L, Modestino R, Grisanti F, Casillo F, Marzola A. Primary lacrimal sac B-cell immunoblastic lymphoma simulating an acute dacryocystitis. *Orbit* 2003; 22: 171-175.
9. Yip CC, Bartley GB, Habermann TM, Garrity JA. Involvement of the lacrimal drainage system by leukemia or lymphoma. *Ophthal Plast Reconstr Surg* 2002; 18: 242-246.
10. Nakamura K, Uehara S, Omagari J, et al. Primary non-Hodgkin's lymphoma of the lacrimal sac: a case report and a review of the literature. *Cancer* 1997; 80: 2151-2155.
11. Kiratli H, Elgin U, Kiratli PO, Bekdik CF. Bilateral lacrimal sac fistulas in a patient with nasopharyngeal non-Hodgkin's lymphoma. *J Pediatr Ophthalmol Strabismus* 1998; 35: 177-178.
12. Scheffler AC, Shields CL, Shields JA, Demirci H, Maus M, Eagle RC Jr. Lacrimal sac lymphoma in a child. *Arch Ophthalmol* 2003; 121: 1330-1333.
13. Tuncer S, Peksayar G, Ağan M. Lenfoid tümörlerin göz tutulumu. *T Oft Gaz* 2002; 32: 142-148.
14. Whitbeck EG, Spiers AS, Hussain M. Mycosis fungoides: subcutaneous and visceral tumors, orbital involvement, and ophthalmoplegia. *J Clin Oncol* 1983; 1: 270-276.
15. Erickson BA, Massaro BM, Mark LP, Harris GJ. Lacrimal collecting system lymphomas: integration of magnetic resonance imaging and therapeutic irradiation. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 1994; 29: 1095-1103.