

A Case Report of Complicated Hydatid Cyst in a Patient with Chronic Lymphocytic Leukemia

Farshideh Didgar¹, Gholamreza Nouri Broujerdi^{1*}, Nasrin Sadat Mirtalaji¹

1- Arak University of medical sciences, Arak, Iran.

Received: 20 Aug 2014, Accepted: 15 Apr 2015

Abstract

Background: Hydatid disease is a zoonotic infestation by a tapeworm of the genus of *Echinococcus* that characterized by cystic lesions in the liver and lungs but rarely in other parts of the body.

Case: Known case of chronic Lymphocytic leukemia was a 56-years old man with several hydatid cysts of liver and lungs that was hospitalized because of ascites and abdominal pain. The patient received albendazol and surgical operation with diagnosis of peritonitis and complicated hydatid cyst in lungs and liver and Peritoneum. Patient expired with DIC and sepsis.

Conclusion: This case report provides evidence that complicated hydatid cysts in immunocompromised patients have a bad prognosis and can not be safely treated by medication and surgery.

Keywords: Disseminated hydatid cyst, Chronic lymphocytic leukemia, Immunosuppression

*Corresponding Author:

Address: Department of Surgery, Arak University of Medical Sciences, Arak, Iran.

Email: rezanouri51@yahoo.com

گزارش یک مورد کیست هیداتیک عارضه‌دار در بیمار مبتلا به لوسمی لنفوسیتی مزمن

فرشیده دیدگر^۱، غلامرضا نوری بروجردی^{۲*}، نسرین سادات میرطلایی^۳

۱- استادیار، متخصص بیماری‌های عفونی، دانشگاه علوم پزشکی اراک، اراک، ایران.

۲- استادیار، فوق تخصص جراحی توراکس، دانشگاه علوم پزشکی اراک، اراک، ایران.

۳- دستیار بیماری‌های عفونی، دانشگاه علوم پزشکی اراک، اراک، ایران.

تاریخ دریافت: ۹۳/۵/۲۹ تاریخ پذیرش: ۹۴/۱/۲۶

چکیده

زمینه و هدف: بیماری هیداتیک یک عفونت مشترک بین انسان و حیوان است که از طریق یک کرم نواری از خانواده اکینوکوکوس ایجاد می‌شود و با ضایعات کیستیک در کبد و ریه و بندرت در سایر قسمت‌های بدن بروز می‌یابد.

معرفی بیمار: مورد شناخته شده‌ی لوسمی لنفوسیتی مزمن، یک مرد ۵۶ ساله همراه با کیست‌های هیداتیک متعدد ریه و کبد بود که با علائم آسیب و درد شکم بستری شد و تحت عمل جراحی لاپاراتومی و درمان با آلبندازول قرار گرفت و در نهایت با علائم انعقاد درون رگی منتشر (DIC)، سپتی سمی و کاهش سطح هوشیاری فوت کرد.

نتیجه‌گیری: معرفی این بیمار نشان می‌دهد که کیست هیداتیک عارضه‌دار در بیماران مبتلا به نقص ایمنی، پیش‌آگهی بدی دارد و پاسخ مناسبی به درمان جراحی و دارویی نمی‌دهد.

واژگان کلیدی: کیست هیداتیک منتشر، لوسمی لنفوسیتی مزمن، نقص ایمنی

*نویسنده مسئول: اراک، دانشگاه علوم پزشکی اراک، گروه جراحی

Email : rezanouri51@yahoo.com

مقدمه

بیماری هیداتیدوزیس یک بیماری مشترک بین انسان و دام می‌باشد که در مرحله لاروی سستوهای انواع اکینو کوکوس ایجاد می‌شود (۱).

این بیماری یک علت عمده بیماری‌زایی و مرگ و میر در کشورهای مختلف دنیا می‌باشد (۲). کیست هیداتیک در کشورهای منطقه خاورمیانه، کشورهای مدیترانه‌ای و اکثر نقاط جهان به ویژه کشورهایی که در آن‌ها دامپروری رایج است شایع بوده و سالانه خسارات بهداشتی و اقتصادی قابل ملاحظه‌ای به بار می‌آورد (۳-۴).

سه فرم مورفولوژیک اکینو کوکوس از نظر بالینی شناخته شده‌اند که در انسان حائز اهمیت می‌باشند و عبارت‌اند از: اکینو کوکوس مولتی لوکولاریس اکینو کوکوس گرانولوزوس و اکینو کوکوس وژلی. مهم‌ترین آن‌ها اکینو کوکوس گرانولوزوس است که در انسان باعث ایجاد کیست هیداتیک می‌شود (۵-۷).

اکینو کوکوزیس کیستیک انسانی به وسیله اکینو کوکوس گرانولوزوس ایجاد می‌شود که بیش از ۹۵ درصد موارد سالیانه کیست هیداتیک در دنیا (۲ تا ۳ میلیون نفر) را موجب می‌گردد. کرم بالغ اکینو کوکوس در روده حیوانات گوشت خوار مانند سگ، گاو و شغال (میزبان نهایی) زندگی می‌کند و تخم‌های دفع شده از کرم از طریق مدفوع این حیوانات در محیط پراکنده می‌شوند. خوردن تخم‌های اکینو کوکوس گرانولوزوس توسط حیوانات علف‌خوار و گاه انسان باعث ضایعات کیستیک دراندام‌هایی مثل کبد، ریه، مغز، طحال، کلیه، استخوان و غیره می‌گردد (۵، ۶، ۸، ۹).

شایع‌ترین محل‌های ابتلا به ترتیب کبد (۷۰ تا ۸۰ درصد) و ریه (۱۲ تا ۲۵ درصد) می‌باشند، ولی ممکن است این بیماری در هر عضوی از بدن بروز یابد. ابتلای سایر ارگان‌ها بسیار کم است و مغز، قلب و استخوان در کمتر از ۱۰ درصد موارد مبتلا می‌شوند. تشخیص این بیماری براساس علائم بالینی و ویژگی‌های رادیولوژی است (۲، ۱۰).

چنانچه سابقه قبلی بیماری هیداتیک وجود نداشته باشد، براساس آنتی‌بادی‌های آنتی اکینو کوک و اوزینوفیلی در آزمایش خون می‌توان به این بیماری پی‌برد (۱۱). اولتراسونوگرافی روش مفیدی برای تشخیص کیست هیداتیک است و نشان دهنده اندازه محل و نوع کیست با حساسیت ۹۵ درصد می‌باشد. در صورت مشاهده فیبریل‌های وزیکولار حساسیت به ۱۰۰ درصد افزایش می‌یابد (۱۲).

مهم‌ترین یافته پاتوگنومونیک، مشاهده کیست‌های دختر در کیست بزرگ‌تر است که به تشخیص کیست هیداتیک از کارسینوم، آبسه‌های کبدی باکتریال و آمیبی و همانژیوم کمک می‌کند. تشخیص کیست هیداتیک عمدتاً بر اساس تست‌های ایمونولوژیک و رادیولوژیک است. روش‌های تصویربرداری گاهی به علت کوچک بودن اندازه ضایعه محدود می‌شوند و تشخیص تصاویر آتپیک از آبسه و نتوپلاس مشکل است (۱، ۴).

بزرگ بودن اندازه کیست هیداتیک ممکن است به علت رشد کند و بدون علامت کیست هیداتیک باشد. رشد سالیانه کیست در حدود یک تا سه سانتی‌متر گزارش شده است (۱۳).

معرفی بیمار

بیمار یک مرد ۵۶ ساله است که با شکایت تب، درد شکم، تهوع و استفراغ مراجعه نموده است. وی مورد شناخته شده لوسمی لنفوسیتی مزمن از یک ماه قبل بوده که تاکنون درمان خاصی دریافت نکرده است. از روز قبل از بستری دچار درد منتشر شکم و از چند روز قبل از آن متوجه اتساع شکم شده است. این بیمار هیچ‌گونه علائم ریوی نداشته است.

علائم حیاتی بیمار در زمان مراجعه به قرار ذیل بوده است: $PR=80/min$, $RR=23/min$, $T=37.3$, $BP=120/80$. در معاینه سر و گردن، لنفادنوپاتی سرویکال دوطرفه و در معاینه شکم، تدرنس منتشر شکمی و آسیت



تصویر ۲. کیست هیداتیک متعدد در هر دو ریه در سی تی اسکن قفسه سینه

درمان با آلبندازول شروع شد و بیمار با تشخیص کیست هیداتید و احتمال پارگی کیست کبد و علائم پریتونیت تحت عمل جراحی قرار گرفت. در اکسپلوراسیون شکم تعداد زیادی کیست هیداتیک در حفره پریتون یافت شد. تخلیه کیست‌های پاره شده به سرعت انجام گرفت و به علت شرایط نامناسب همودینامیک بیمار، اکسپلوراسیون کولدوک انجام نشد. بعد از شست و شوی کامل حفره شکم و لگن، جدار شکم ترمیم شد و درمان آنتی‌بیوتیکی گسترده‌ای شروع شد. در روز چهارم پس از جراحی، بیمار به علت کاهش فشار خون و افت هوشیاری به بخش مراقبت‌های ویژه منتقل گردید. در آزمایشات جدید، افزایش بیلی روبین و ترومبوسیتوپنی گزارش شد: $Bil = 12/9$ $PLT = 40000$ ، $Bil (Total) = 22/6$ ، (D)

در طول بستری، بیمار دچار تب، علایم انعقاد درون رگی منتشر و دیسترس تنفسی شد و تحت ونتیلاتور قرار گرفت. در نهایت، بیمار در روز دوازدهم بستری فوت کرد.

بحث

بیماری کیست هیداتیک عمده‌تاً در کبد و ریه ایجاد می‌شود (۲)، در ۷۰ تا ۸۵ درصد موارد این دو ارگان مبتلا می‌شوند. اگر چه هر ارگانی ممکن است به این بیماری مبتلا شود (۸). اما مکان شیوع واقعی کیست‌های خارج کبدی مشخص نیست (۳).

داشت. جدول ۱ نتیجه‌ی آزمایشات پاراکلینیک بیمار را بدو مراجعه‌ی وی نشان می‌دهد.

جدول ۱. آزمایشات پاراکلینیک

WBC	71/800
Lymp	64%
PLT	250000
ESR	32
CRP	+2
AST	409
ALT	239
BIL(T)	1.2
BIL(D)	0.7
ALK.p	290

در سونوگرافی و سی تی اسکن شکم و لگن کیست‌های متعددی در لوب راست و چپ و نیز در کبد که بزرگ‌ترین آنها 75×15 میلی‌متر بود، همراه با آسیت فراوان گزارش شد. هم‌چنین احتمال کیست پاره شده شکمی به پریتون مطرح گشت (تصویر ۱).



تصویر ۱. کیست‌های هیداتیک متعدد کبد در سی تی اسکن شکم

در رادیوگرافی قفسه سینه و سی تی اسکن ریه، کیست‌های ریوی متعدد و دوطرفه گزارش شد. (تصویر ۲)

موارد نادری از کیست هیداتیک در بیماران دچار نقص ایمنی گزارش شده است.

اسکالی و همکاران اولین بار کیست هیداتیک را در یک بیمار دریافت کننده پیوند کلیه گزارش کردند که با رزکسیون جراحی و آلبندازول درمان شد (۱۴).

اگر چه عفونت‌های پارازیتی به وسیله سستودها در بیماران اچ آی وی مثبت بسیار غیر معمول است، مواردی از همراهی عفونت اکینو کوک و اچ آی وی گزارش شده است. اختلال پاسخ ایمنی منجر به پیشرفت سریع و کنترل نشده عفونت‌های فرصت طلب در بیماران اچ آی وی مثبت می‌شود (۱۸-۱۵).

روماس و همکاران یک بیمار اچ آی وی مثبت با کیست هیداتیک کبد، ریه و پریتون را گزارش کردند (۱۵).

کسکین عود کیست هیداتیک اسپینال را در یک بیمار اچ آی وی مثبت گزارش کرده است (۱۹).

مطالعات قبلی نشان داده‌اند که ایمنی سلولی و هومورال نقش اساسی در پاسخ ایمنی در هیداتیدوز انسان دارند.

فعالیت سلول‌های Th1 و Th2 و تولید ایمونوگلوبولین‌ها مثل IgG و IgE در مراحل مختلف عفونت روی می‌دهد و پیشرفت بیماری و سیر بالینی را مشخص می‌کند (۱۶).

سیر پیشرونده عفونت اکینو کوکوس در بیماران مبتلا به نقص ایمنی گزارش شده است.

زینگ و همکاران اظهار کردند که سلول‌های Th به ویژه CD4+ مهم‌ترین فاکتور در رابطه با شدت عفونت اکینو کوک و پاسخ ایمنی به پارازیت می‌باشند (۱۸).

لوسمی لنفوسیتی مزمن سلول B، اختلال لنفوسیت‌هایی است که با گسترش و تجمع لنفوسیت‌های کوچک با منشأ سلول B شناخته می‌شوند. اساساً لوسمی لنفوسیتی مزمن در سیستم REAL و WF به نام لنفوم لنفوسیتی کوچک سلول B شناخته می‌شود. این بیماری شایع‌ترین نوع لوسمی در ایالات متحده است و مردان را دو

برابر زنان درگیر می‌کند. این بیماری اگر چه در هر سنی اتفاق می‌افتد، ولی بروز آن با افزایش سن زیاد می‌شود و بیش از ۹۰ درصد موارد در افراد بالغ بالای ۵۰ سال تشخیص داده می‌شود.

سلول‌های لوسمی لنفوسیتی مزمن در مغز استخوان، خون محیطی، گره‌های لنفی و طحال تجمع کرده و منجر به لنفوسیتوز، کاهش عملکرد مغز استخوان، لنفادنوپاتی و اسپلنومگالی می‌شود.

لوسمی لنفوسیتی مزمن هم‌چنین با اختلال تنظیم سیستم ایمنی که با هایپوگاماگلوبولینمی خود را نشان داده و باعث افزایش ریسک عفونت باکتریال و بیماری خود ایمنی مانند آئمی همولیتیک کومبس مثبت یا ترومبوسیتوپنی ایمنی می‌شود، همراه است (۲۰).

اگر چه همراهی کیست هیداتیک با سایر بیماری‌ها از جمله عفونت‌های قارچی و آسپرژیلوس در مطالعات قبلی عنوان شده است (۲۱-۱۶)، اما عفونت اکینو کوکوس در بیماران مبتلا به نقص ایمنی به ویژه لوسمی لنفوسیتی مزمن کمتر گزارش شده است و این بیمار یکی از موارد نادر کیست هیداتیک منتشر می‌باشد.

در این گزارش، نقص ایمنی بیمار ممکن است باعث انتشار و پیشرفت عفونت اکینو کوک شده باشد. از این رو، بیماری هیداتیک در بیمار با درگیری کبد، ریه و شکم تظاهر پیدا کرد.

کیست هیداتیک فاقد عارضه معمولاً به صورت تصادفی در رادیوگرافی روتین قفسه سینه و با دلایل دیگری غیر از بیماری‌های ریه تشخیص داده می‌شود. اگرچه هامارتوم، کیست برونکوژنیک و آدنوم نیز می‌توانند به صورت ضایعات کیستیک نمود یابند (۲۴-۲۲).

کیست‌های پاره نشده به صورت توده‌های گرد یا بیضی شکل که حاشیه مشخص دارند در رادیوگرافی یا سی تی اسکن مشخص می‌شوند (۲۵). به عبارت دیگر، کیست بیماری هیداتیک در صورت برخورد با ضایعات متعدد کیستیک در چند عضو، به ویژه کبد و ریه بدون علائم سیستمیک و یا همراه با علائم ناشی از اثر فشاری به عنوان

تعیین بهترین روش درمان در موارد عارضه‌دار مستلزم مطالعات بیشتری است.

تشکر و قدردانی

بدین وسیله محققان از همکاری صمیمانه ی پرسنل بخش عفونی و بخش جراحی بیمارستان ولیعصر کمال تشکر و قدردانی را دارند.

منابع

- Mandell GL, Bennett JE, Dolin R. Mandell, Douglas, and Bennett's principles and practice of infectious diseases. 7thed. Philadelphia: Elsevier, Churchill Livingstone Co ; 2010.
- Creău C, Codreanu R, Mastalier B, Popa L, Cordoș I, Beuran M. Albendazole associated to surgery or minimally invasive procedures for hydatid disease—how much and how long. *Chirurgia (Bucur)*. 2012;107(1):15-21.
- Chu X, Wang G, Feng X, Er X, He J, Wen H. [Risk factors on human cystic echinococcosis in Hobukesar Mongolian Autonomous County in Xinjiang]. *Zhonghua liu xing bing xue za zhi= Zhonghua liuxingbingxue zazhi*. 2010;31(3):297-9.
- Von Bartheld M, Van Breda A, Annema J. Complication rate of endosonography (endobronchial and endoscopic ultrasound): a systematic review. *Respiration*. 2014;87(4):343-51.
- Schein M. Schwartz's Principles of Surgery, F. Charles Brunicaudi, Dana K. Andersen, Timothy R. Billiar, David L. Dunn, John G. Hunter, Jeffrey B. Matthews, Raphael E. Pollock (Eds). *World Journal of Surgery*. 2010;34(4):871-3.
- Michael D, Angelica MD, yuman MD. The liver sabiston textbook of surgery 18th ed. Philadelphia saunders. 2008.P.1494-6.
- Mirosolav Milicevic. Echinococcal cysts: Cause Diagnosis, complications & Medical & surgical treatment Josef E Ficher MD Malinckrodt professore of surgery Harvard medical school, Boston Massachusetts mastery of surgery, fifth edition 2007.P.1043-75.
- Gulalp B, Koseoglu Z, Toprak N, Satar S, Sebe A, Gokel Y, et al. Ruptured hydatid cyst

اولین تشخیص مطرح می‌باشد، به ویژه در کشور ما که منطقه آندمیک کیست هیداتیک محسوب می‌شود. در بیمار مورد نظر، تعدد ضایعات کیستیک، ابتلاء هم‌زمان کبد و ریه، عدم وجود علائم ریوی علی‌رغم وجود کیست‌های متعدد ریه، به شدت مطرح کننده کیست هیداتیک کبد و ریه است. کیست‌های هیداتیک بدون عارضه علی‌رغم اندازه بزرگشان پیش آگهی خوبی دارند و به جراحی و رزکسیون کیست پاسخ مناسبی می‌دهند (۲۲).

از طرفی هیچ بیماری انگلی غیر از کیست هیداتیک وجود ندارد که درمان اولیه آن جراحی باشد (۷). بیماران با کیست پاره شده ممکن است ترشحات کیست را از ریه دفع کنند و هموتیزی یا تب از خود نشان دهند (۲۳). با این وجود، بعضی از کیست‌های عارضه‌دار موجب ایجاد اشکال در تشخیص می‌شوند و برای تشخیص نهایی ممکن است نیاز به دخالت جراحی باشد (۲۶).

راه‌های مختلفی برای ابتلای ارگان‌هایی غیر از کبد و ریه توضیح داده شده است. در حدود ۵ تا ۱۵ درصد پارازیت‌ها از فیلتر مویرگ‌های کبد و ریه به جریان خون سیستمیک وارد می‌شوند و در نواحی مختلف کاشته می‌شوند (۲۷، ۲۸).

وادل یک انتقال هوابرد و جایگزینی مستقیم در برونشول‌ها و نفوذ از ونول‌های برونکیال به سمت چپ قلب و جریان خون سیستمیک را توضیح داده است. ولی این راه انتقال جنبهٔ تئوریک داشته و نیاز به اثبات دارد. در بیماران مبتلا به نقص ایمنی بیماری منتشر می‌یابد و ابتلای ارگان‌های مختلف مشاهده می‌شود (۲۴، ۲۷).

نتیجه‌گیری

بیماری اکینو کوکوس باید در تشخیص افتراقی هر توده کیستیک منفرد یا متعدد و در هر محل آناتومیکی در نظر گرفته شود، به ویژه زمانی که بیماری در نواحی آندمیک روی دهد. نقص ایمنی ممکن است عامل پیشرفت عفونت اکینو کوک در بیماران باشد. تشخیص و درمان سریع در پیش‌گیری از ایجاد عوارض کمک کننده است. اثبات ارتباط بین نقص ایمنی و عفونت اکینو کوکوس منتشر و نیز

19. Keskin F, Erdi F, Kalkan E, Karatas Y. Recurrence of Primary Spinal Cyst Hydatid in a HIV(+) Patient. *Journal neurological sciences*. 2013; (30):455-60.
20. Goldman L, Ausiello D. *Cecil medicine*. 23 edition, WB Saunders Co, 2008; p:1404-1405.
21. Manzoor mu. Faruqi 25/Ahmad Quddin N,khana. Aspergilloma complicating Nemyly d:agnosed pulmonary echinococcal (hydatid) cyst:a rare occarence. *Br Radiol*. 2008.
22. Mahmood N, Azam H, Ali MI, Khan MA. pulmonary Hydatid cyst with complicating Aspergillus Infection presenting as a Refractory Lung Abscess. *Clinical medicine insights Case reports*. 2011;4:63-8.
23. Kuzucu A, Soysal Ö, Özgel M, Yologlu S. Complicated hydatid cysts of the lung: clinical and therapeutic issues. *The Annals of thoracic surgery*. 2004;77(4):1200-4.
24. Shields TW. *General thoracic surgery*: Lippincott Williams & Wilkins; 2005. P.1298-307.
25. Brunetti E, Junghanss T. Update on cystic hydatid disease. *Current opinion in infectious diseases*. 2009;22(5):497-502.
26. Krasnigi A, Limani D, Gashi-Luci L, Spahiga G, Dreshaj I. Primary cyst of the gallbladder. *journal of medical case report*. 2010 ; 4:29-30.
27. Kavukcu S, Kilic D, Tokat AO, Kutlay H, Cangir AK, Enon S, et al. Parenchyma-preserving surgery in the management of pulmonary hydatid cysts. *Investigative Surgery*. 2006; 19(1):61-8.
28. Zidi A, Ben M-MK, Hantous-Zannad S, Fathallah B, Mestiri I, Baccouche I, et al. [Computed tomography of complicated pulmonary hydatid cyst by rupture in the bronchi]. *Journal de radiologie*. 2007; 8(1 Pt 1):59-64.
- following minimal trauma and few signs on presentation. *Neth J Med*. 2007;65(3):117-8.
9. Dalimi-Asl A, Ghasemikhah R, Hashemi Malayeri B. The lethal effect of low voltage of direct electrical current of the hydatid cyst protocolectes. *Exp parasitol* 2005 ;109 : 237-10.
10. Abid L, Laroussi L, Abdennadher M, Msaad S, Frikha I, Kammoun S. A cardiac hydatid cyst underlying pulmonary embolism: a case report. *Pan African Medical Journal*. 2011;8(1):120-1.
11. Bayaroğullari H, Davran R, Çavuş Y, Yetim TD, Evirgen Ö. Liver hydatid cyst leading to bilateral pulmonary artery embolism and bilateral multiple pulmonar echinococcosis via inferior vena cava: report of a case. *Clinical imaging*. 2013; 37(2):374-8.
12. Almadani N, Almutairi B, Alassiri AH. Primary subcutaneous hydatid cyst with palisading granulomatous reaction. *Case reports in pathology*. 2013;2013.
13. Singh S, Khichy S, Singh M, Gill JS. Recurrent solitary hydatid cyst of the subcutaneous tissue. *Indian Journal of Surgery*. 2009; 71(3):162-4.
14. Sqalli T, Buchler M, Al Najjar A, Paris A, Halimi J, Nivet H, et al. Hydatid cyst disease in a renal allograft recipient. *Saudi Journal of Kidney Diseases and Transplantation*. 2009;20(6):1057-8.
15. Ramos JM, Masia M, Padilla S, Bernal E, Martin-Hidalgo A, Gutiérrez F. Fatal infection due to larval cysts of cestodes (neurocysticercosis and hydatid disease) in human immunodeficiency virus (HIV) infected patients in Spain: report of two cases. *Scandinavian journal of infectious diseases*. 2007;39(8):719-23.
16. Erayman I, Kalkan E, Erdi F, Kerimoglu Ü, Esen H. Primary spinal hydatid cyst in a patient with acquired immunodeficiency syndrome. *European Spine Journal*. 2011;20(2):235-8.
17. Shenoy V, Joshi S, Aklujkar A, Kotwal V, Nadkarni N, Ramraje N. Pulmonary hydatid cyst in HIV-1 disease. *JAPI*. 2005;53: 1070-2.
18. Zingg W, Renner-Schneiter E, Pauli-Magnus C, Renner E, Van Overbeck J, Schläpfer E, et al. Alveolar echinococcosis of the liver in an adult with human immunodeficiency virus type-1 infection. *Infection*. 2004; 32(5):299-302.