

Dieulafoy hastalığının anjiyografik bulguları ve endovasküler embolizasyonu: olgu bildirisi ve literatürün gözden geçirilmesi

Ghazi Alshumrani, Mohammed Almuaikael

King Khalid Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji (G.A. ✉ galshumrani@yahoo.com) Anabilim Dalı, Abha; ve King Fahad National Guard Hastanesi, Radyoloji (M.A.) Anabilim Dalı, Riyadh, Suudi Arabistan.

Dieulafoy lezyonu üst GİS kanamalarının yaklaşık %4'ünün kaynağı olduğu düşünülen nadir bir GİS kanama nedenidir (1). Kanama sıklıkla mide proksimalinde yerleşim gösteren anormal olarak genişlemiş erode olmuş submukozal arterden kaynaklanır (2-4). Günümüzde tanı ve tedavi için standart yöntem endoskopidir (1, 5, 6). Endovasküler embolizasyon ve cerrahi tanı ve tedavide güçlük yaşanan olgularda kullanılır. Bu hastalığın anjiyografi bulguları ve transkater embolizasyonu radyoloji literatüründe nadiren tartışılmıştır (7-11).

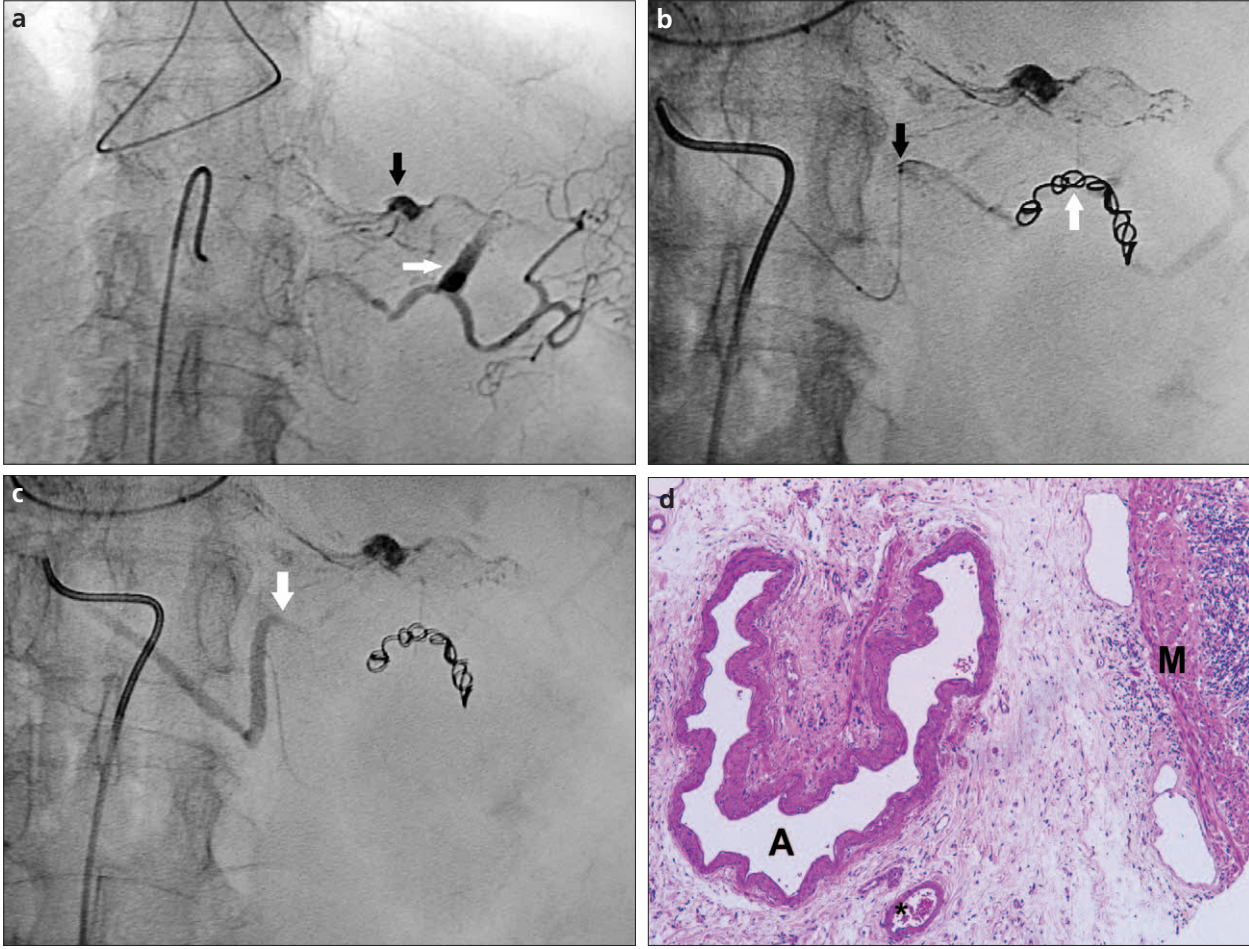
İleri yaşta bir olguda mide proksimal kesiminde yerleşim gösteren, endoskopi ve anjiyografiyle tanımlanamamış bir Dieulafoy lezyonunun anjiyografi bulgularını ve selektif transkater embolizasyonunu tanımlıyoruz. Amacımız bu potansiyel olarak hayatı tehdit eden duruma dikkat edilmesi ve transkater embolizasyonun tedavideki yerinin tartışılmasıdır.

Olgu bildirisi

77 yaşında diyabeti, parkinsonizmi, hipertiroidizmi, hasta sinüs sendromu ve ileri düzeyde kronik obstrüktif akciğer hastalığı bulunan erkek olgu 12 saatlik kanlı kusma şikâyeti ile başvurdu. Hikayesinde 1 aydır halsizlik, yorgun düşme ve koyu renkte gayta çıkardığı tespit edildi. Başvurudan birkaç ay öncesine kadar aralıklı olarak aspirin kullandığı ancak alkol veya sigara kullanmadığı öğrenildi. Başvuru anında cildi soluk, nabızı dakikada 85 ve kan basıncı 100/65 mmHg idi. Karnı rahat ve barsak sesleri normaldi. Kronik karaciğer hastalığı, deri damarsal malformasyonu veya kollajen vasküler hastalık bulgusu yoktu. Rektal muayenede koyu gayta tespit edildi. Hemoglobin değeri 68 g/L, trombosit sayısı ve kanama parametreleri normaldi.

Olguya üç ünite eritrosit süspansiyonu verildi. Başvuru anında ve bir sonraki günde yapılan endoskopilerinde büyük ve fundus yerleşimli pıhtı izlendi ancak kanama odağı tespit edilemedi. Olgu hipovolemik şok halindeyken yoğun bakım ünitesine alındı ve yeniden transfüzyon yapıldı. Cerrahi ekibi ile konsülte edildi. Epinefrin enjeksiyonu ve ısı probu uygulaması ile üçüncü endoskopi yapıldı ancak kanama devam etti.

Kanama odağının belirlenmesi ve olası embolizasyon için anjiyografi istendi. % Fr kateter ile (SOS Omni selective, Angiodynamics, NY) çölyak arterin selektif anjiyogramı elde edildi. Anjiyogramda orta splenik arterden çıkan anormal derecede geniş kısa bir gastrik arter tespit edildi, bu odaktan mide fundusuna kontrast madde kaçıışı gözlemlendi (Şekil, a).



Şekil a-d. Çölyak arterin pre-embolizasyon selektif anjiyogramında (a) splenik arterden orjin alan ektatik kısa gastrik arter (*beyaz ok*) görülmektedir. Mide fundusunda küçük bir daldan aktif kanamaya işaret eden kontrast ekstravazasyonu görülmekte (*siyah ok*). Splenik arterin subselektif kateterizasyonu ve kısa gastrik arter orjininin distal ve proksimalinden mikrokoiller kullanılarak embolizasyonu (b) (*beyaz ok*). Mikrokateterin ucu (*siyah ok*) proksimal splenik arterin içerisinde izleniyor. Post-embolizasyon anjiyogramda (c) splenik arterde tam oklüzyonu temsil eden kontrast kesintisi izlenmektedir (*beyaz ok*). Rezeke edilmiş proksimal midenin histolojik kesitinde (d) muskularis mukeza altındaki (M) geniş tortüyoöz submukozal arter (A) izlenmektedir. Aynı kesitte normal büyüklükteki bir submukozal arteriyol de (*) görülmektedir.

Splenik arter subselektif olarak 3 Fr mikrokateter ile kateterize edildi (Excelsior 1018 microcath, Boston Scientific-Target, Fremont, CA). Olgu stabil durumda olmadığından kısa gastrik arter süperselektif olarak kateterize edilemedi. Splenik arterin distal ve kısa gastrik arter orjininin proksimalindeki kesimleri 3 adet mikrokoil (Complex Helical Fibered Platinum Coil-18, 4x30 mm, Boston Scientific-Target Therapeutic, Fremont, CA) kullanılarak embolize edildi (Şekil, b). Fundus kesiminde kontrast ekstravazasyonu devam ettiği için “gelfoam” (Pharmacia Corp, Kalamazoo, MI) kullanılarak tam oklüzyon sağlandı (Şekil, c). Olguya embolizasyon öncesinde 1 gr İV seftriakson, sonrasında ise pnömokok aşısı uygulandı.

İşlem sonrasında üst GİS kanamanın miktarı ve sıklığı azaldı ancak ka-

nama tam olarak durmadı. Bu durum altta yatan malignite şüphesi nedeniyle birkaç gün sonrası için elektif parsiyel gastrektomi planlaması için zaman kazandırdı. Dieulafoy hastalığı tanısı histolojik olarak konuldu (Şekil, d). Takipte olduğu 6 ay süresince yeni kanama görülmedi.

Tartışma

Dieulafoy hastalığı ilk olarak Gallard tarafından 1884’te midenin millier anevrizmaları olarak tanımlandı ve 1898 yılında Dieulafoy tarafından “exulceratio simplex” adı altında karakterize edildi (12, 13). Bu anomali Dieulafoy’un ülseri, variköz anevrizma, gastrik anevrizma, gastrik ateroskleroz, kalibreli-persistan arter ve submukozal arteriyel malformasyon olarak da adlandırılır (2, 3). Bu isimlerden bazıları örneğin; anevrizma, arteriyove-

nöz malformasyon ve ateroskleroz bu hastalığı yansıtmaz (3, 14). Bildirilen insidans % 0.3 ile 6.7 arasındadır (2, 14). Tüm yaş gruplarında görülebilir ancak sıklıkla 60 yaş üzerindeki erkeklerde görülür (1, 5, 14, 15). Proksimal mide, klasik olarak küçük kurvatur tutulur (14-16). Olguların üçte birinde mide dışı tutulum vardır, en sık duodenum takiben ise kolon tutulur (16, 17).

Histolojik olarak lezyon küçük bir mukozal defekttan anormal olarak geniş ve tortüyoöz submukozal arterin uzanım göstermesidir (3, 18, 19). Lezyonun orjini konusu tartışmalıdır. Bazı yazarlar konjenital veya anatomik varyant olduğunu savunurken, bazıları ise edinsel veya yaşa bağlı olduğunu savunurlar (3, 19). Hastalığın patojenezi net anlaşılamamıştır. Genişlemiş pulsatil arter alttaki mukozaya mekanik hasar vererek arterin mide ve kolon içeriğine

maruz kalacak şekilde küçük bir ülser oluşumuna yol açabilir. Bu durumda arter kimyasal ve mekanik olarak erode olur ve sonuçta kanama gerçekleşir (4, 18, 19). Olgumuzda olduğu gibi aspirin, nonsteroid antienflamatuvar ilaçlar ve alkolün bildirilmiş ilişkileri vardır (4, 17, 18). Bazı olgularda Takayasu arteriti ve Behçet hastalığı varlığı bildirilmiştir (20, 21).

Klasik klinik prezentasyon aralıklı, bazen masif olabilen GİS kanaması ve ilişkili hipotansiyondur. Olguların çoğunda (%51) hematemez ve melena beraber olur (14). İskemik kalp hastalığı, hipertansiyon, diyabet, karaciğer hastalığı ve böbrek yetmezliği gibi morbiditeyi artıran diğer durumlar olguların %90'ında vardır (6, 17). İlk endoskopi olguların %71'inde tanısız amaçlıdır ancak kesin tanı için çoklu endoskopiler gerekebilir (1). Başarısız ilk endoskopiler, ortamda fazla miktarda kan bulunmasına (%44) veya lezyonun atlanmasına (%56) bağlı olabilir (17). Pulsatil submukozal arterin gösterilmesinde ve endoskopik tedavinin yönlendirilmesinde endoskopik Doppler ultrasonografi kullanılabilir (1, 22).

Dieulafoy hastalığı radyoloji literatüründe ilk olarak Durham ve arkadaşları tarafından 1990'da tartışıldı (7). Anjiyografi bulguları normal olarak da görülebilen erode arterden kontrast madde ekstrasvazasyonunu kapsar (7). Ancak, anjiyografide sol gastrik arter trasesinde erken venöz dönüş olmaksızın tortüöz ektatik arterlerin saptanması halinde gastrik Dieulafoy hastalığı düşünülmelidir (3). Olgumuzda kısa gastrik arterlerin trasesinde ektatik arterler ve küçük dallarından ekstrasvazasyon saptandı. Erken venöz dönüş yoktu (Şekil, a). Anjiyografik olarak normal drenaj venlerinin erken dolması ile birlikte anormal damar yumağının bulunması Dieulafoy hastalığını anjiyodisplaziden ayırır (4). Dieulafoy hastalığına bağlı 177 olgu içeren bir yazıda olguların yaklaşık 58'inde anjiyografi tanı yöntemi olarak kullanılmıştır ve %78 oranında kanama odağını başarıyla tespit edebilmiştir (14). 9 olgulu bir seride, olguların 3'ünde anjiyografi yapılmış ve tüm olgularda lezyon lokalizasyonu tespit edilebil-

miştir (7). Grace ve arkadaşları splenik arter anomalili bir Dieulafoy hastalığı olgusunda anjiyografik tanı rapor etmişlerdir (8). Son dönemde bilgisayarlı tomografi anjiyografi ile tanı konmuş bir olgu da bildirilmiştir (23).

Endoskopi şu anda ilk tedavi seçeneğidir (1, 6). Endoskopide kalıcı hemostaz elde etme oranı %90'dan fazladır (16). Epinefrin enjeksiyonu ve elektrokoter (ısı probu) en sık kullanılan endoterapilerdir (5).

Selektif anjiyografi ve embolizasyon; a) endoskopik tedavinin başarısız olduğu, b) endoskopinin ulaşamayacağı alt GİS kanamalarında, c) cerrahiye kaldıramayacak olgularda tedavi seçeneği olabilir (5). Gastrik Dieulafoy lezyonlarının embolizasyon sonuçları değişkendir. Reilly ve Al-Kawas'ın çalışmalarında 4 olgunun 3'ü başarılı "gelfoam" embolizasyonu ile tedavi edildi. "Gelfoam" ile embolizasyon gerçek gastrik arter anevrizmalarından köken alan 3 üst GİS kanamalı olguda başarıyla uygulandı (24). Durham ve arkadaşlarının 2 olgusundan 1'inde polivinil alkol partikülleri ile embolizasyon başarılı oldu (7). Ancak, bizim olgumuzda olduğu gibi embolizasyon sonrası kanama oluşabilir ve cerrahi müdahale gerekli olabilir. Kırk olgulu bir seride (5), embolizasyon uygulanan

3 Dieulafoy olgusunda cerrahi gerekli olmuştur. Aynı lezyondan yeniden kanama kollateral dolaşım veya besleyici arterin tam olmayan embolizasyonu ile açıklanabilir (3). Kolonik Dieulafoy lezyonlarının endovasküler koil embolizasyonunda sonuçlar iyidir (10, 11).

Dieulafoy hastalığının uzun dönem prognozu iyidir. Tahmini toplam mortalite oranı endoskopik yöntemle ve cerrahi olarak tedavi edilmiş olgularda benzer olarak %8.6'dır (1).

Dieulafoy hastalığının tanısı ve tedavisi zorluklar içerir. GİS kanaması olan bir olguda ilişkili bir drenaj veni olmaksızın dilate tortüöz bir arterden ekstrasvazasyon tespit edildiği durumlarda mutlaka akla getirilmelidir. Özellikle midenin Dieulafoy hastalığının transkateter selektif embolizasyonunun etkinliği ile ilgili daha çok çalışma gerekli olmasına rağmen literatürde, bu yöntemin cerrahi öncesinde daha az invazif bir tedavi yaklaşımı olarak kullanımını destekleyen yeterli miktarda ipuçları vardır.

Teşekkür

Yazarlar, Prof. Dr. Dorothy Makanjoula'ya yazıyı değerlendirdiği için, Dr. Abdulrazzaq Haider'e de patoloji kesitlerini tekrar değerlendirdiği için teşekkür eder.

ANGIOGRAPHIC FINDINGS AND ENDOVASCULAR EMBOLIZATION IN DIEULAFOY DISEASE: A CASE REPORT AND LITERATURE REVIEW

ABSTRACT

Dieulafoy disease is an unusual cause of gastrointestinal (GI) hemorrhage that can be fatal. It arises from an abnormally large eroded submucosal artery commonly located in the proximal stomach. Since this disease first described in 1884, it has been rarely discussed in radiology literature. We describe a case of an elderly patient with multiple medical problems presented with upper and lower GI hemorrhage. Repeated upper GI endoscopies revealed a large fundal clot but otherwise were unremarkable. Angiography showed anomalous short gastric artery originating normally from the splenic artery. The latter was embolized with microcoils and Gelfoam[®]. Following embolization, the frequency and amount of bleeding decreased although did not totally stop and the patient underwent elective partial gastrectomy. The diagnosis was made histologically. Therefore, Dieulafoy disease can represent a diagnostic and therapeutic challenge. It should be suspected if a patient with GI hemorrhage is found to have extravasation from a dilated tortuous artery that appears normal otherwise with no associated large draining veins. Transcatheter selective arterial embolization has a reported role in the literature as a less invasive therapeutic option compared to surgery.

Key words: • Dieulafoy disease • gastrointestinal tract, hemorrhage • gastrointestinal tract, angiography • arteries, therapeutic blockade

Diagn Interv Radiol 2006; 12:151-154

Kaynaklar

1. Romaozinho JM, Pontes JM, Lérias C, Ferreira M, Freitas D. Dieulafoy's lesion: management and long-term outcome. *Endoscopy* 2004; 36:416-420.
2. Chaer R, Helton WS. Dieulafoy's disease. *J Am Coll Surg* 2003; 196:290-296.
3. Eidus LB, Rasuli P, Manion D, Heringer R. Caliber-persistent artery of the stomach (Dieulafoy's vascular malformation). *Gastroenterology* 1990; 99:1507-1510.
4. Bateman AC, Beer TW, Bass PS, Odurny A, Gallagher PJ. Massive arterial hemorrhage from the lower gastrointestinal tract. *Histopathology* 1996; 29:225-231.
5. Schmulewitz N, Baillie J. Dieulafoy lesions: a review of 6 years of experience at a tertiary referral center. *Am J Gastroenterol* 2001; 96:1688-1694.
6. Parra-Blanco A, Takahashi H, Mendez Jerez PV, et al. Endoscopic management of Dieulafoy lesions of the stomach: a case study of 26 patients. *Endoscopy* 1997; 29:834-839.
7. Durham JD, Kumpe DA, Rothbarth LJ, Van Stiegmann G. Dieulafoy disease: arteriographic findings and treatment. *Radiology* 1990; 174:937-941.
8. Grace P, O'Sullivan R, Adam A, Williamson R. Case report: vascular anomaly in Dieulafoy's disease. *Clin Radiol* 1991; 44:201-202.
9. Reeves TQ, Osborne TM, List AR, Civil ID. Dieulafoy disease: localization with thrombolysis-assisted angiography. *J Vasc Interv Radiol* 1993; 4:119-121.
10. Dobson CC, Nicholson AA. Treatment of rectal hemorrhage by coil embolization. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1999; 22:143-146.
11. Ashour MA, Millward SF, Hadziomerovic A. Embolotherapy of a Dieulafoy lesion in the cecum: case report and review of the literature. *J Vasc Interv Radiol* 2000; 11:1059-1062.
12. Gallard T. Miliary aneurysms of the stomach giving cause to fatal hematemesis. *Bull Soc Med Hop Paris* 1884; 1:84-91.
13. Dieulafoy G. Exulceratio Simplex. *Bull Acad Med* 1898; 39:49-84.
14. Reilly HW, Al-Kawas FH. Dieulafoy's lesion. Diagnosis and management. *Dig Dis Sci* 1991; 36:1702-1707.
15. Ortuno-Cortes JA, Quintana-Tomas L, Garcia-Garcia A. Endoscopic sclerotherapy is useful in Dieulafoy's disease. *Gastroenterol Hepatol* 1996; 19:47-51.
16. Lee YT, Walmsley RJ, Leong RW, Sung JJ. Dieulafoy's lesion. *Gastrointest Endosc* 2003; 58:236-243.
17. Norton ID, Petersen BT, Sorbi D, Balm RK, Alexander GL, Gostout CJ. Management and long-term prognosis of Dieulafoy lesion. *Gastrointest Endosc* 1999; 50:762-767.
18. Juler GL, Labitzke HG, Lamb R, Allen R. The pathogenesis of Dieulafoy's gastric erosion. *Am J Gastroenterol* 1984; 79:195-200.
19. Miko TL, Thomazy VA. The caliber persistent artery of the stomach: a unifying approach to gastric aneurysm, Dieulafoy's lesion, and submucosal arterial malformation. *Hum Pathol* 1988; 19:914-921.
20. Usui J, Takemura H, Yuhara T, et al. Dieulafoy's lesion of the esophagus as a probable complication of Takayasu's arteritis. *J Rheumatol* 1999; 26:454-456.
21. Arendt T, Kloehn S, Bastian A, et al. A case of Behcet's syndrome presenting with Dieulafoy's ulcer. *Z Gastroenterol* 1997; 35:935-938.
22. Fockens P, Meenan J, van Dullemen HM, Bolwerk CJ, Tytgat GN. Dieulafoy's disease: endosonographic detection and endosonography-guided treatment. *Gastrointest Endosc* 1996; 44:437-442.
23. Penner RM, Owen RJ, Williams CN. Diagnosis of a bleeding Dieulafoy lesion on computed tomography and its subsequent embolization. *Can J Gastroenterol* 2004; 18:525-527.
24. Helliwell M, Irving JD. Hemorrhage from gastric artery aneurysms. *Br Med J (Clin Res Ed)* 1981; 282:460-461.