

Özofagus duplikasyon kisti: Çocuklarda solunum sıkıntısının farklı bir nedeni

Hayrettin ÖZTÜRK¹, Kazım KARAASLAN², Hanifi OKUR³, Hülya ÖZTÜRK⁴

Abant İzzet Baysal Üniversitesi Tıp Fakültesi, ¹Çocuk Cerrahisi Anabilim Dalı, Bolu, ²Anesteziyoloji Anabilim Dalı, Bolu, ³Dicle Üniversitesi Tıp Fakültesi Çocuk Cerrahisi Anabilim Dalı, Diyarbakır, ⁴İzzet Baysal Kadın Doğum ve Çocuk Hastanesi, Çocuk Cerrahisi, Bolu

ÖZET

Özofagus duplikasyon kistleri, çocuklarda görülen enterik kaynaklı nadir konjenital anomalilerdendir. Gastrointestinal sistemin anormal kanalizasyonu sonucu oluşurlar. Klinik semptomlar genellikle kistin büyüklüğüne ve lokalizasyonuna bağlıdır. Forgut duplikasyon kistli bulunan çocuklar en sık solunum ile ilgili semptomlarla başvururlar. Bu çalışmada, solunum sıkıntısı bulunan iki forgut kisti olgusu sunulmuştur.

Anahtar sözcükler: Özofagus duplikasyon kisti, solunum sıkıntısı, çocuk

Esophageal duplication cyst: Another cause of respiratory distress in children

SUMMARY

Esophageal duplication cysts are rare congenital anomalies of enteric origin found in children. They are considered to be due to abnormal cannulisation of the gastrointestinal tract. Clinical symptoms depend on the size and the localization of the cysts. Respiratory symptoms are the most frequent symptoms seen in children presenting foregut duplication. In this study, we present two patients with foregut cyst was in whom dyspnea evident.

Key words: Esophageal duplication cyst, respiratory distress, child

GİRİŞ

Özofagus duplikasyon kisti embriyolojik yaşamın başlangıcında vakuollerin tam olmayan birleşmeleri sonucunda meydana gelir ve daha çok posteriyor mediastende lokalize olurlar (1,2). Özellikle neonatal dönemde respiratuar distres sendromu bulguları verebilecek kadar ileri klinik bulguların ortaya çıkmasına neden olabilirler (3,4,5).

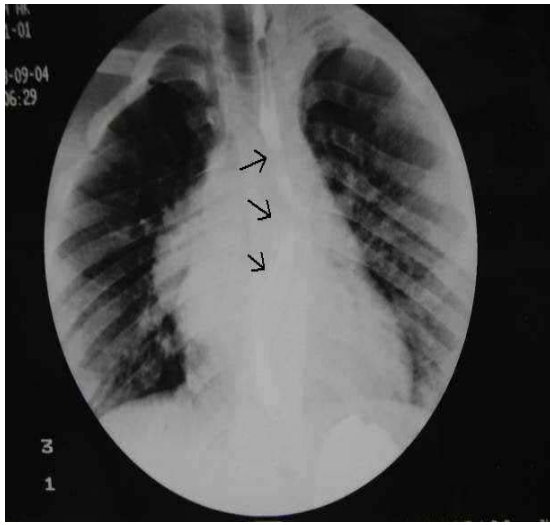
Çalışmamızda solunum sıkıntısı bulunan iki özofagus duplikasyon kisti olgusu nadir görülmesi nedeniyle literatür gözden geçirilerek sunulmuştur.

OLGU 1

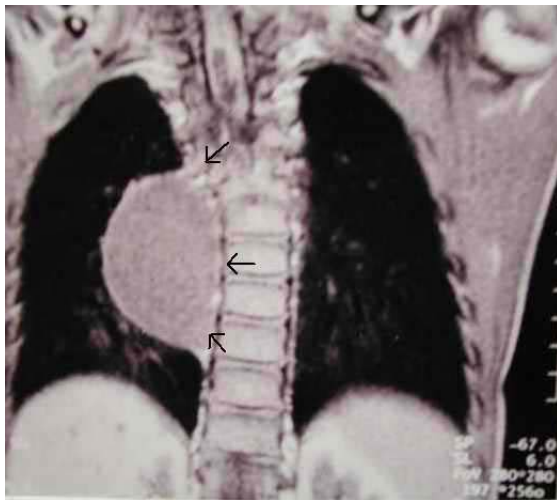
İ.A yedi yaşında erkek çocuğu, öksürük ve solunum sıkıntısı şikayetleri ile kliniğimize getirildi. Fizik muayenede ateş 37°C, nabız 124/dk, kan basıncı 80/50 mmHg

olarak bulundu. Akciğer dinlemekle sağ üst zonlarda solunum sesi alınamadı. Tam kan ve biyokimya çalışmaları normal idi. Toraks ultrasonografi (USG) normal olarak değerlendirildi. Toraks bilgisayarlı tomografi çalışmasında (BT) sağ akciğer üst lob posteriyor segment ile alt lob superiyor segmentleri tutan yaklaşık 30x55 mm boyutlarında kistik kitle lezyonu izlendi (kist hidatik?, bronkojenik kist ?, enterik kist?). Kist hidatik hemaglutinasyon testi negatif geldi. Özofagusun baryumlu radyolojik çalışmasında özofagusun 1/3 orta bölümünün sola doğru deviye olduğu kitle ile birlikte izlendi (Resim 1). Torakal magnetik rezonans (MR) incelemesinde sağ paravertebral alanda karina seviyesinden başlayıp aşağıya doğru uzanım gösteren T1A görüntülerinde hipointens, T2A görüntülerinde hiperintens karakterde İV Gd-DTPA enjeksiyonu sonrası çevresel tarzda minimal sinyal artışı gösteren

31x55 mm boyutlarında kistik kitle lezyonu izlendi (bronkojenik kist ?, enterik kist?). Kitlenin spinal kanala doğru belirgin uzanımı izlenemedi (Resim 2). Bu bulgular ile operasyona karar verildi ve sağ torakotomi ile kisteye ulaşıldı. Kistik kitle dikkatli diseksiyonlar sonucunda total olarak çıkarıldı. Sağ toraks boşluğu kapalı su altı drenajına alındı. Operasyondan sonraki ikinci günde kontrol akciğer grafileri yardımı ile toraks tüpü çekildi ve şifa ile taburcu edildi. Kistik kitlenin histopatolojik incelemelerinde statifiye yer yer kolumnar epitel ile döşeli, kas, yağ dokusu ve damar kesitlerinden oluşmuş kistik kitle (özofagus kisti) sonucu geldi.



Resim 1. Olgu 1'de kitle ile birlikte özofagusun sola doğru deviye olduğu izlenmekte



Resim 2. Olgu 1'e ait özofagus duplikasyon kistinin magnetik rezonans görüntüsü.

OLGU 2

M.S yedi aylık erkek çocuğu, öksürük, ateş, solunum sıkıntısı ve kilo kaybı şikayetleri ile kliniğimize getirildi. Fizik muayenede, Fizik muayenede ateş 37.5°C, nabız 120/dk, kan basıncı 80/50 mmHg olarak bulundu. Akciğer dinlemekle sağ üst zonlarda solunum sesi azalmış olarak alındı. Tam kan ve biyokimya incelemeleri normal bulundu. Toraks USG'de sağ akciğer üst-orta zonda 5cm çapında kistik kitle lezyonu izlendi. Toraks BT'de sağ akciğerde başlıca üst lob posteriyor segment ile alt lob superiyor ve medial bazal segmentleri tutan yaklaşık 50x45 mm boyutlarında sferik konturlu kistik kitle lezyonu izlendi (bronkojenik kist? enterik kist?). Hastaya sağ torakotomi yapılarak kisteye ulaşıldı ve kistik kitle dikkatli diseksiyonlar sonucunda total çıkarıldı. Sağ toraks boşluğu kapalı su altı drenajına alındı. Operasyondan sonraki ikinci günde kontrol akciğer grafileri yardımı ile toraks tüpü çekildi ve şifa ile taburcu edildi. Kistik kitlenin histopatolojik incelemelerinde kesitlerde yer yer ülser olmuş intestinal tipte epitel ile döşeli doku örnekleri görüldü. Duvarda mide ve barsak duvarına benzer şekilde longitudinal ve sirküler kas tabakası ile birlikte gastrik ve intestinal mukozada yer yer yoğun inflamatuvar hücre infiltrasyonu dikkati çekmektedir. Ayrıca duvarda sinir lifleri ve ganglion hücre toplulukları seçilmektedir. Sonuç "foregut kist" (gastroenterik kist) (Resim 3).

TARTIŞMA

Özofagus duplikasyon kistlerinin küçük çaplı olanları asemptomatik kalabilirler ve başka amaçla çekilen akciğer grafisinde tesadüfen tespit edilirler (6). Daha büyük çaplı kistler ise hava yollarına bası yaparak öksürük, solunum sıkıntısı ve tekrarlayan pnömonilere neden olurlar (2,6,7). Neonatal dönemde respiratuar distres sendromu bulguları verebilecek kadar ileri klinik bulguların olduğu vaklarda bildirilmiştir (3,4,5). Burgner ve arkadaşlarının (3) çalışmasında torasik foregut duplikasyon kisti saptadıkları bir infantta respiratuar distres ve hemoptizi semptomlarının ile birlikte kistin peptik ülser zemininde perforasyon olduğunu bildirmişlerdir. Özofagus duplikasyonlarında disfaji daha nadir bir semptomdur (2). Cioffi ve arkadaşlarının (8) erişkin yaş grubunda yaptıkları çalışmalarında bronkojenik ve

özofagus duplikasyon kisti olgularında en sık semptom göğüs ağrısı ve yutma güçlüğü olduğunu bildirmişlerdir. Çalışmamızdaki her iki olgumuzda da özofagus duplikasyon kistlerinin bası bulgularının neden olduğu solunum sıkıntısı ve tekrarlayan akciğer enfeksiyonu şikayetleri ön plana çıkmıştır.



Resim 3. Olgu 2'nin özofagus duplikasyon kisti duvarının histopatolojik görüntüsü. Duvarda mide ve barsak duvarına benzer şekilde longitudinal ve sirküler kas tabakası ile birlikte gastrik ve intestinal mukoza seçilmektedir.

Enterik kistlerin teşhisi akciğer grafisi ve BT ile konulur (1,2,9). Ayrıca özofagusun baryumlu çalışması, teknezyum 99m perteknetat, abdominal USG, BT, ya da MR çekilebilir (2,4,9). Ayrıca enterik kistlerin intrauterin teşhisi de bildirilmiştir (2).

Enterik duplikasyon kistleri genellikle posteriyor mediasten boyunca ve boyunda lokalizedir (2,7). Kistik yapı daha çok özofagus duvarının adalesi içinde bulunduğu halde bazen tamamen ayrı da olabilir (2). Hastalarımızın her ikisinde kistik kitle sağ akciğer üst ve orta posteriyor mediastende yerleşmiştir ve özofagus duvarından ayrı kitleler olarak bulunmuştur.

Özofagus multipotent forguttan geliştiği için histopatolojik incelemelerde özofagus

duplikasyonlarının iç yüzü en sık mide mukozası olmak üzere solunum veya skuamoz epitelle döşeli olabilir ve özofagus ve mide düz kası içerebilir (2,7). Ayrıca intramural adrenal kortikal artıklar saptanabilir (10). Çalışmamızda her iki olgumuzun kist duvar yapılarının histopatolojik incelemelerinde adrenal kortikal artıklar hariç enterik kistlerin yukarıda belirtilen klasik bulgularına rastlanılmıştır.

Özofagus duplikasyon kistleri %12 oranında diğer konjenital anomaliler ile birlikte olabilir (2). En sık birlikte olduğu ek anomali özofagus dışı enterik duplikasyonlar olup özofagus atrezisi, parsiyel perikardiyal defekt ve vertebral anomali ile birlikte görülen vakalar da bildirilmiştir (6,11,12). Her iki olgumuzda da ek konjenital patoloji saptanmamıştır.

Enterik kistlerin tedavisi torakotomi ile özofagusun devamlılığının bozulmadan kistin eksize edilmesinden ibarettir (2,6,8). Ancak son zamanlarda laparoskopik yöntemlerle kistin cerrahi tedavisinin olabileceğini bildiren çalışmalarda vardır (8,13). Her iki olgumuzda da torakotomi ile kistin eksizyonu yapılmıştır.

Özofagus duplikasyon kistlerinin tanısı geciktiğinde özellikle erişkin yaş gruplarında kistik yapının adenokarsinoma dönüşebildiği hatta metastaz yapabildiği de bildirilmiştir (14,15).

Sonuç olarak, intratorasik forgut duplikasyon kistleri akciğer ya da özofagusa yaptıkları bası sonucu semptomların belirgin hale geldiği dönemde tanı alabilirler. Ek anomaliler ile birlikte olabileceği göz önüne alınarak bu açıdan hastaların araştırılması gerekir. Tedavisi cerahidir.

Yazışma adresi:

Doç. Dr. Hayrettin ÖZTÜRK

Abant İzzet Baysal Üniversitesi Tıp Fakültesi

Çocuk Cerrahisi AD

14280 BOLU

Tel: 03742534656-3220

E-posta: ozturkhayrettin@hotmail.com

Fax : 0374 2534615

KAYNAKLAR

1. Laraja RD, Rothenberg RE, Chapman J, Imranul-Haq, Sabatini MT: Foregut duplication cyst: a report of a case. Am Surg. 61:840-1, 1995.
2. Philippart AI, Farmer DL: Benign mediastinal cysts and tumors, in Grosfeld J.L., Coran A.G., O'Neill JA. et al (ed).

- Pediatric Surgery Med. St. Louis. Mosby, p.839, 1998
3. Burgner DP, Carachi R, Beattie TJ: Foregut duplication cyst presenting as neonatal respiratory distress and haemoptysis. *Thorax*. 49:287-8, 1994
 4. Raffensperger JG: Short gut syndrome, in Raffensperger JG (ed). "Swensons's Pediatric Surgery", Fifth Edition, Connecticut, Appleton & Lange, p579 1990
 5. Stewart RJ, Bruce J, Beasley SW: Oesophageal duplication cyst: another cause of neonatal respiratory distress. *J Paediatr Child Health*. 29:391-2, 1993.
 6. Birmole BJ, Kulkarni BK, Vaidya AS, Borwankar SS: Intrathoracic enteric foregut duplication cyst. *J Postgrad Med*. 40:228-30, 1994.
 7. Başaklar CA: Gastrointestinal sistem duplikasyonları. *Yenidoğanın cerrahi hastalıkları*. Palme Yayınları, Ankara, s299 1994
 8. Cioffi U, Bonavina L, De Simone M, Santambrogio L, Pavoni G, Testori A, Peracchia A: Presentation and surgical management of bronchogenic and esophageal duplication cysts in adults. *Chest*. 113:1492-1496, 1998.
 9. Fitch SJ, Tonkin IL, Tonkin AK: Imaging of foregut duplication cysts. *Radiographics*. 6:189-201, 1986.
 10. Wright JR Jr, Gillis DA: Mediastinal foregut cyst containing an intramural adrenal cortical rest: a case report and review of supradiaphragmatic adrenal rests. *Pediatr Pathol*. 13:401-7, 1993.
 11. Hemalatha V, Batcup G, Brereton RJ, Spitz L: Intrathoracic foregut cyst (foregut duplication) associated with esophageal atresia. *J Pediatr Surg*. 15:178-80, 1980
 12. Kassner EG, Rosen Y, Klotz DH Jr: Mediastinal esophageal duplication cyst associated with a partial pericardial defect. *Pediatr Radiol*. 24:4:53-56, 1975.
 13. Tan YK, Hui MT, Wong J, Yeo CT, Sng I, Ong YY: Four cases of developmental foregut cysts. *Ann Acad Med Singapore*. 25:763-8, 1996.
 14. Chuang MT, Barba FA, Kaneko M, Tierstein AS: Adenocarcinoma arising in an intrathoracic duplication cyst of foregut origin: a case report with review of the literature. *Cancer*. 1;47:1887-1890, 1981.
 15. Lee MY, Jensen E, Kwak S, Larson RA: Metastatic adenocarcinoma arising in a congenital foregut cyst of the esophagus: a case report with review of the literature. *Am J Clin Oncol*. 21:64-6, 1998.