



OLGU SUNUMU/CASE REPORT

İnfant döneminde nadir bir stridor nedeni: konjenital laringocele

A rare cause of stridor in infancy: congenital laryngocele

Ali Özdemir¹, Dilek Doğruel², Aydın Yücel³, Arman Apı⁴

¹Mersin Kadın Doğum ve Çocuk Hastanesi Çocuk Göğüs Hastalıkları, ²Çocuk Alerji ve İmmünoloji, ³Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları, ⁴Çocuk Cerrahisi, Mersin Kadın Doğum ve Çocuk Hastanesi, Mersin, Turkey

Cukurova Medical Journal 2016;41(3):581-583.

Abstract

A five months old male infant was presented with difficulty in breathing and stridor since birth. Chest radiography showed clear lung fields with prominent peribronchial markings. The patient underwent flexible bronchoscopic procedure which showed a large, anteriorly located, laryngeal cystic dilatation above the vocal cords. Subsequent imaging with ultrasonography and MR confirmed the diagnosis of congenital laryngocele. His airway was secured by tracheotomy and decompression of the cyst was accomplished by needle aspiration. Congenital laryngocele is an extremely rare disorder of the larynx causing various degree of upper airway obstruction and a neck mass. The disorder may be associated with hoarseness, dysphagia, difficulty in breathing and aspiration.

Key words: congenital laryngocele, stridor, endoscopic imaging

Öz

Beş aylık erkek olgu doğumdan itibaren solunum zorluğu ve stridor nedeniyle başvurdu. Akciğer grafisinde peribronşial belirginleşme dışında parankim normal bulundu. Hastaya tanısal fleksible bronkoskopi uygulandı ve ön laringeal bölgede vokal kordların üstünde büyük bir kistik dilatasyon saptandı. Akabinde yapılan ultrasonografi ve MR görüntülemesiyle konjenital laringesel tanısı kesinleştirildi. Trakeotomi ve takibinde kistik yapının iğne aspirasyonu ile boşaltılarak hava yolu stabilize edildi. Konjenital laringesel üst hava yolunda darlık ve boyunda kitle yapan çok nadir doğumsal bir anomaldir. Ses kısıklığı, yutma güçlüğü, solunum zorluğu ve aspirasyonla seyredebilir.

Anahtar kelimeler: konjenital laringesel, stridor, endoskopik görüntüleme

GİRİŞ

Üst hava yolunun obstrüksiyonuna bağlı olarak çıkan sesler stridor olarak adlandırılır. Stridorun ayırıcı tanısında öykü ve fizik muayene bulguları önemlidir. Doğumu takiben ortaya çıkan stridor konjenital anomalileri, 4-6 haftadan sonra başlayan stridor laringomalazi ve trakeomalaziye ön planda düşündürür. İleri yaşlarda ise stridor nedeni genellikle enfeksiyonlar ve yabancı cisim aspirasyonu şeklinde karşımıza çıkar¹⁻³.

Stridor obstrüksiyonun yerine bağlı olarak inspiratuar, ekspiratuar ya da bifazik olabilir. Supraglottik alanın doku desteği zayıf olduğu için bu bölgedeki patolojiler inspirasyonda oluşan negatif basınç nedeniyle içe doğru kollabe olur ve inspirasyonda yüksek rezonanslı stridora neden

olmaktadır. Glottik veya subglottik alanda kartilaj desteği daha yeterli olduğu için lümen içi basınç değişiklikleri az etkilidir ve bu bölgenin darlıklarında stridor hem inspiratuar hem de ekspiratuar oluşur. Ekspiratuar stridor ise trakeal ve bronşların toraks içi lezyonlarında görülmektedir^{4,5}.

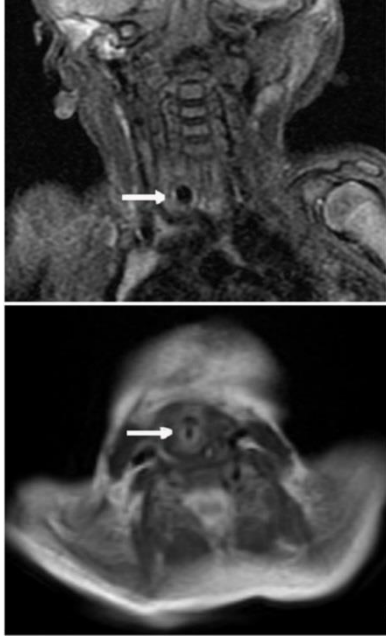
Hastanemize doğumdan itibaren solunum güçlüğü ve stridor nedeniyle başvuran 5 aylık mental-motor redardasyonu olan erkek olgunun yapılan tetkikler sonucunda bu dönemde nadir görülen konjenital laringesel tanısı alması vaka takdimi olarak sunulmuştur.

OLGU

Beş aylık erkek hasta, hırıltılı solunum ve nefes almada güçlüklerle yatırıldı. Özgeçmişinde aynı

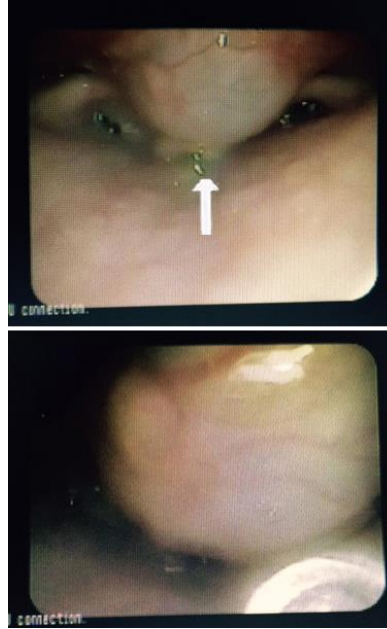
Yazışma Adresi/Address for Correspondence: Dr. Dilek Doğruel; Mersin Kadın Doğum ve Çocuk Hastanesi, Pediatrik Alerji ve İmmünoloji, Mersin, Turkey, E-mail: dilekkaragoz1977@hotmail.com
Geliş tarihi/Received: 03.12.2015 Kabul tarihi/Accepted: 04.01.2016

şikayetleri yenidoğan döneminden itibaren görüldüğü ve mükerrer hastane yatışları olduğu belirlendi. İki aylıkken mental-motor gerilik ve epilepsi tanılarıyla çocuk nörolojisi tarafından fenobarbital tedavisi başlanmış. Fizik muayenesinde spastik ve mental-motor geriliği belirgindi, tartı: 5.6 kg (%10-25), boy: 62 cm (%25-50), baş çevresi: 39 cm (%3-10) bulundu. Laringeal hafif stridor ve akciğer sesleri oksültasyonla kaba olarak saptandı. İki lt/dakika nazal oksijen ile oksijen saturasyonu: %95; kapiller kan gazı: pH:7.36, pCO₂:49 mmHg, HCO₃:20 mEq/L olarak saptandı. Akciğer grafisi bilateral peribronşial belirginleşme dışında normaldi. Yapılan fleksibl bronkoskopik incelemede larinks ön duvarında belirgin vokal kordlar üzerine bası yapan



Resim 1a ve 1b. Laringeal bölgenin endoskopik görüntüsü.

kistik kitlesel oluşum gözlemlendi (Resim1a ve 1b). Trakeobronşial incelenmesi normal ancak bilateral ana bronşlardan gelen beyaz şeffaf sekresyon saptandı. BAL kültüründe Klebsiella üredi ve uygun antibiyotik ile tedavi edildi. Yapılan boyun ultrasonografisi ve manyetik rezonans (Resim 2a ve 2b) tetkiklerinde içi hava dolu kistik yapının varlığı teyit edildi. Tiroid sintigrafisi normal bulundu. Hastanın solunumunu rahatlatmak için trakeostomi açıldı ve devamında başarıyla iğne aspirasyonu ile kistik oluşuma müdahale edildi. Operasyon sonrası izleminde kliniği stabil seyreden hastanın ailesine trakeostomi eğitimi verilerek taburcu edildi. Hastanın trakeostomi kanülü açık olarak poliklinik kontrolleri halen devam etmektedir.



Resim 2a ve 2b. Sagittal ve aksiyel MR görüntüsü.

TARTIŞMA

Laringosel, laringeal sakkülden kaynaklı orta hat anterior servikal üçgende gözlenen içi çoğunlukla hava veya nadiren sıvı dolu kistik bir dilatasyon veya herniasyonudur. Genellikle erişkinlerde bildirilmiştir. Erken çocukluk döneminde çok nadir rastlanır. Tiroid membranla ilişkisine göre internal, eksternal veya mikst tip olarak üçe ayrılır. İnternal olanı larinks içine sınırlıdır, eksternal olanı tiroid membranı zayıf noktasından delerek boyunun yumuşak dokuları arasına herniye olur, mikst tip ise

internal ve eksternal laringoselin birlikte olduğu durumdur.

Klinik olarak laringosel asemptomatik şişlik şeklinde olabileceği gibi ses kısıklığı, solunum güçlüğü, stridor, değişen derecelerde siyanoz, beslenme güçlüğü ve enfeksiyon bulguları yakınmaları olabilmektedir^{6,7}.

Ayrıntı tanı yine aynı bölgeden kaynaklanan kistik oluşumlarla yapılmalıdır. Bunlar arasında tiroglossal duktus kisti, sakküler kist, dermoid kist, Zenker divertikülü, bronşial kist ve timik kist sayılabilir.

Orta hat anterior servikal bölgeden en sık tiroglossal kiste rastlanmaktadır. Ancak konjenital bir kitle olmasına rağmen geç dönemde (2-10 yaş) ortaya çıkar. Nedeni embriyonel hayatta kaybolmayan tiroglossal duktus epitelyal artıklarının geçirilen ÜSYE bağlı büyümesiyle ağrısız, dil ve yutma hareketiyle mobil, yumuşak kitle olarak fark edilir. Tiroglossal kist çoğunlukla asemptomatiktir. Laringosel en sık sakküler kist ile karıştırılır. Sakküler kist laringeal lümen ile birleşmeyen sakkülusun mukus ile dolarak genişlemesidir. Submukozada yerleşir. Görüntüleme teknikleri ile laringoselden ayırt edilir⁸⁻¹⁰. Hastamız yenidoğan döneminden itibaren solunumsal yakınmalar nedeniyle değişik sağlık kurumlarına başvurması problemin konjenital olduğunu ortaya koymaktadır.

Tanısının geciktirilmesinin nedeni mental motor retardasyonu ve beraberinde konjenital laringomalazi şeklinde düşünülmüş olabilir. Ancak tarafımızdan uygulanan fiberoptik endoskopik görüntüleme ile tanı almıştır. Devamında yapılan diğer görüntüleme teknikleri ile tanısı kesinleşmiştir. Laringosel kitlesel olarak ciddi hacim teşkil ettiği için hastamıza öncelikle hava yolunu stabilize etmek için trakeotomi açılmış ve devamında müdahale gerektiren cerrahi iğne aspirasyon işlemi ile kistin havası aspire edilmiştir. Laringosele diğer bir yaklaşım şekli ise cerrahi rezeksiyondur. Ancak KBB kliniği ile konsülte edilen hastaya riskleri fazla olan bu tip operasyonun ileri bir tarihte nüks olursa uygulanacağı belirtilmiştir. Bu yaşta üst hava yolunu

tıkayan çok nadir konjenital bir kitle olması nedeniyle sunulmuştur.

KAYNAKLAR

1. Leung AK, Cho H. Diagnosis of stridor in children. *Am Fam Physician*. 1999;60:2289-96.
2. Midyat L, Cakir E, Kut A. Upper airway abnormalities detected in children using flexible bronchoscopy. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2012;76:560-3.
3. Erdem E, Gokdemir Y, Unal F, Ersu R, Karadag B, Karakoc F. Flexible bronchoscopy as a valuable tool in the evaluation of infants with stridor. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2013;270:21-5.
4. Boudewyns A, Claes J, Van de Heyning P. Clinical practice: An approach to stridor in infants and children. *Eur J Pediatr*. 2010;169:135-41.
5. Clough J. Managing stridor in children. *Practitioner*. 1995;239:724-8.
6. Chu L, Gussack GS, Orr JB, Hood D. Neonatal laryngoceles: a cause for airway obstruction. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 1994;120:454-8.
7. Arslan M, Erkan Ü, Dağoğlu MH. Kombine laringosel. *KBB ve Baş Boyun Cerrahisi Dergisi*. 1993;1:145-8.
8. Koç C. Pediatrik boyun kitleleri. *Klinik Pediatri Dergisi*. 2002;1:62-72.
9. Civantos FJ, Holinger LD. Laryngoceles and saccular cysts in infants and children. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 1992;118:296-300.
10. Öğreden Ş, Karaman E, Işıldak H, Kaytoz A. Yenidoğanda konjenital laringeal kist. *Turk Arch Otolaryngol*. 2009;47:99-102