

Çocuklarda tekrarlayan hışıltının nadir bir nedeni: Bronkojenik kist

A rare cause of recurrent wheezing in children: Bronchogenic cyst

Şule Gökçe, Feyza Koç, Gamze Talay, Nergis Asadova, Gizem Şenyazar, Metin Delebe,
Murat Cem Dal, Sadık Akşit

Ege Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları, İzmir

Özet

Bronkojenik kistler embriyonik dönemde anormal tomurcuklanma sonucu gelişen iyi huylu lezyonlardır. Sıklıkla karinanın arka bölgesinde yerleşirler ve mediastinal kitlelerin yaklaşık %50'sini oluştururlar. Asemptomatik olabilecekleri gibi çocukluk çağında solunum yollarına bası yaparak bulgu verebilirler. Semptomların süresi ve sıklığı kronik akciğer hastalığı gelişimi açısından risk oluşturmaktadır. Bu yazıda tekrarlayan hışıltı nedeniyle başvuran ve bronkojenik kist saptanan bir olgu sunulmuştur.

Pam Tıp Derg 2013;6(3):168-173

Anahtar sözcükler: Bronkojenik kist, hışıltı, kronik akciğer hastalığı.

Abstract

Bronchogenic cysts are benign congenital anomalies caused by aberrant development of the foregut in the embryonic period. These anomalies are located in the posterior part of the carina and constitute about 50% of all mediastinal lesions. In childhood, bronchogenic cysts may be asymptomatic or cause symptoms due to pressure on the respiratory tract. The duration and severity of the symptoms are main determinants for the developments of chronic lung diseases. In this paper, we presented an infant case with bronchogenic cyst admitted to our clinic with recurrent wheezing.

Pam Med J 2013;6(3):168-173

Key words: Bronchogenic cyst, wheezing, chronic respiratory disease.

Giriş

Bronkojenik kistler embriyonik ön barsağın anormal tomurcuklanması sonucu gelişen ve nadir görülen benign konjenital lezyonlardır [1]. Mediastinal kistlerin yaklaşık %50'sini oluştururlar. Genellikle trakeobronşial ağaç boyunca ve sıklıkla da karinanın arka kısmında yerleşirler. Üçte ikisi mediastende trakea ve karina çevresinde gelişir [2]. Erişkin döneme kadar asemptomatik olabilecekleri gibi çocukluk döneminde bronşlara bası yaparak öksürük, stridor, dispne gibi semptom ve bulgulara yol açabilir. Bronkojenik kist, tekrarlayan hışıltı ayırıcı tanısında her ne kadar nadir görülen bir durum olsa da akılda tutulmalıdır. Bu yazıda tekrarlayan hışıltı nedeni ile kliniğimize yatırılan, yapılan tetkikler sonucunda bronkojenik kist saptanan 6,5 aylık bir kız hasta sunulmuştur.

Olgu

Altı buçuk aylık kız hasta, öksürük, hırıltılı solunum, kusma yakınmaları ile polikliniğe başvurdu. Olgunun öyküsünde, doğumdan bu yana kusmasının olduğu, 2,5 aylıktan beri 3 kez bronşiolit nedeniyle yatırılarak tedavi edildiği öğrenildi. Çekilen P-A akciğer grafisinde sağ akciğerde hafif havalanma fazlalığı olması nedeniyle yabancı cisim aspirasyonu şüphesiyle ileri tetkik ve tedavi amacıyla kliniğe yatırıldı. Hastanın öz ve soy geçmişinde başka bir özellik saptanmadı.

Yapılan fizik bakışında, ağırlık: 7700 gr (50 persantil) boy: 66 cm (25 persantil) baş çevresi: 44.5 cm (25-50 persantil) olarak saptandı. Genel durumu iyi olan hastada takipne (solunum sayısı 48/dk), dispne ve wheezing gözlemlendi. Hastanın

Şule Gökçe

Yazışma Adresi: Ege Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları, İzmir
e-mail: sule.gokce@yahoo.com

Gönderilme tarihi: 26.07.2013

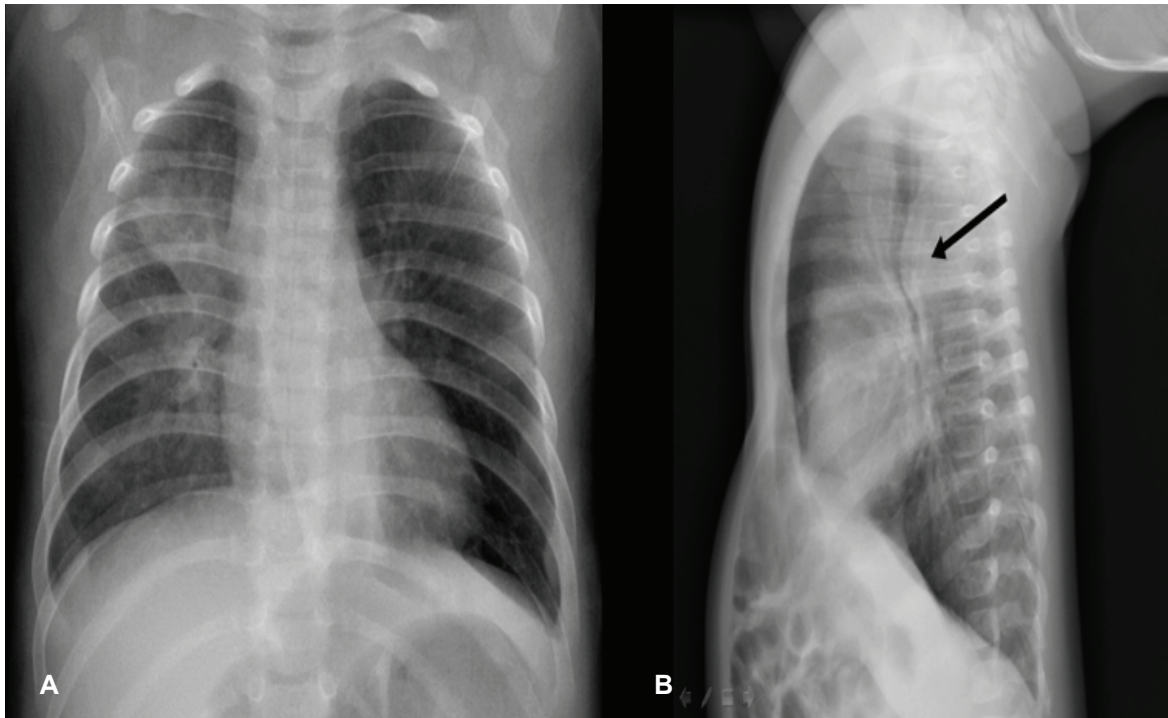
Kabul tarihi: 17.09.2013

solunum skoru 7 olarak değerlendirildi. Akciğer oskültasyonunda bilateral ekspiryum uzaması, yaygın sibilans ve akciğer bazallerinde krepitan raller saptandı. Diğer sistem bakıları olağandı.

Laboratuvar tetkiklerinde, hemogram, CRP, sedimentasyon hızı, kan biyokimyası ve kan gazı normal sınırlarda saptandı. Çekilen akciğer grafisinde bilateral akciğerlerde hava hapsi, kotlarda paralelleşme, sağ akciğerde daha belirgin yaygın mukus tıkaçları ve atelektazi izlendi. Sağ yan akciğer grafisinde trakeadan öne doğru yaylanma bulgusu gözlemlendi (Şekil 1a,b). Olgu klinik ve laboratuvar tetkikleri sonucunda akut bronşiolit olarak değerlendirildi.

Tedavi olarak intravenöz sıvı desteği yanında, 6 doz inhale salbutamol, 2 doz inhale budesonid başlandı. Ancak solunum sıkıntısı devam eden olguda tedaviye intravenöz dekzametazon eklendi.

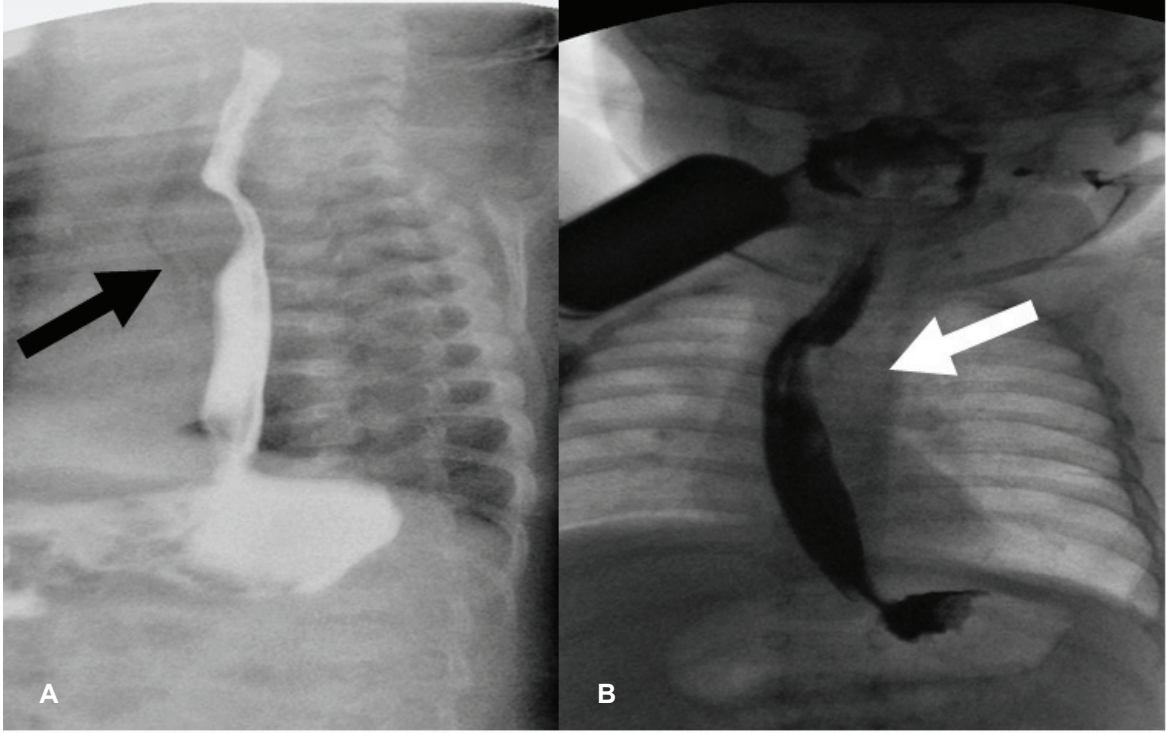
Tekrarlayan hışıltı öyküsü olması nedeniyle araştırılan olgunun tetkiklerinde immün yetmezlik açısından bakılan IgG: 368 mg/dl (düşük), IgA: 36 mg/dl (normal), IgM:102 mg/dl (normal) saptandı. Yapılan diğer tetkiklerinde, total IgE, spesifik IgE, ter testi normal olarak bulundu. Solunum virus panelinde RSV (+) olarak saptandı.



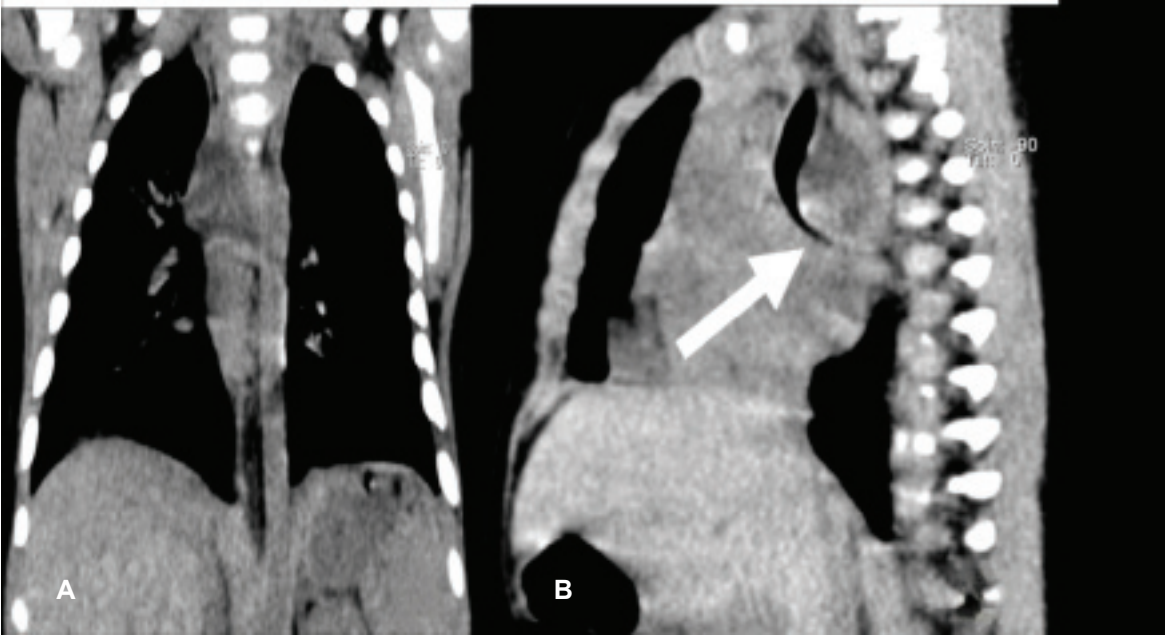
Şekil 1a: P-A akciğer grafisi. Sağ üst lob posterior segmentte atelektazi, yaygın mukus tıkaçları izlenmektedir.1b: Lateral akciğer grafisi. Sol diaframda kaudale doğru itilme, trakeada anteriora doğru yaylanma bulgusu mevcuttur.

Immunglobulin G düzeyi düşük olan olguya süt çocuğunun geçici hipogamaglobulinemisi düşünülerek intravenöz immunglobulin desteği verildi. İzleminin 3. gününde almakta olduğu tedavilere rağmen solunum skorunda azalma olmayan olguda daha ileri görüntüleme tetkikleri planlandı. Sağ yan akciğer grafisinde trakeadan anteriora doğru yaylanma bulgusu gözlenmesi üzerine olası anatomik konjenital anomalileri saptamak için sineözefagografi ve çift kontrastlı mide duodenum grafisi çekildi. İncelemeler sonucunda gastroözefajial reflü,

özefagusa bası yapan mediastinal kistik yer kaplayan oluşum saptandı (Şekil 2a,b). Yüksek rezolüsyonlu toraks bilgisayarlı tomografisinde (BT) gastroözefajial reflü hastalığı, aspirasyona bağlı atelektaziler, mediasteninin sağ tarafında trakeanın dorsalinde özefagusun ventralinde ve medialinde yer alan trakea-karina üzerine bası yapan 22x20x15 mm boyutlarında keskin ve düzgün sınırlı hipodens kistik yer kaplayan oluşum saptandı (Şekil 3a,b). Toraks manyetik rezonans görüntülemesinde (MRI) posterior mediastende trakea ve karina posteriorunda yer



Şekil 2a,b: Çift kontrastlı mide-duodenum grafisi. Yaklaşık 2.5 cm uzunluğunda, düzgün sınırlı özefagusu arkaya ve sağa, trakeayı öne iten yer kaplayan oluşum izlenmektedir.



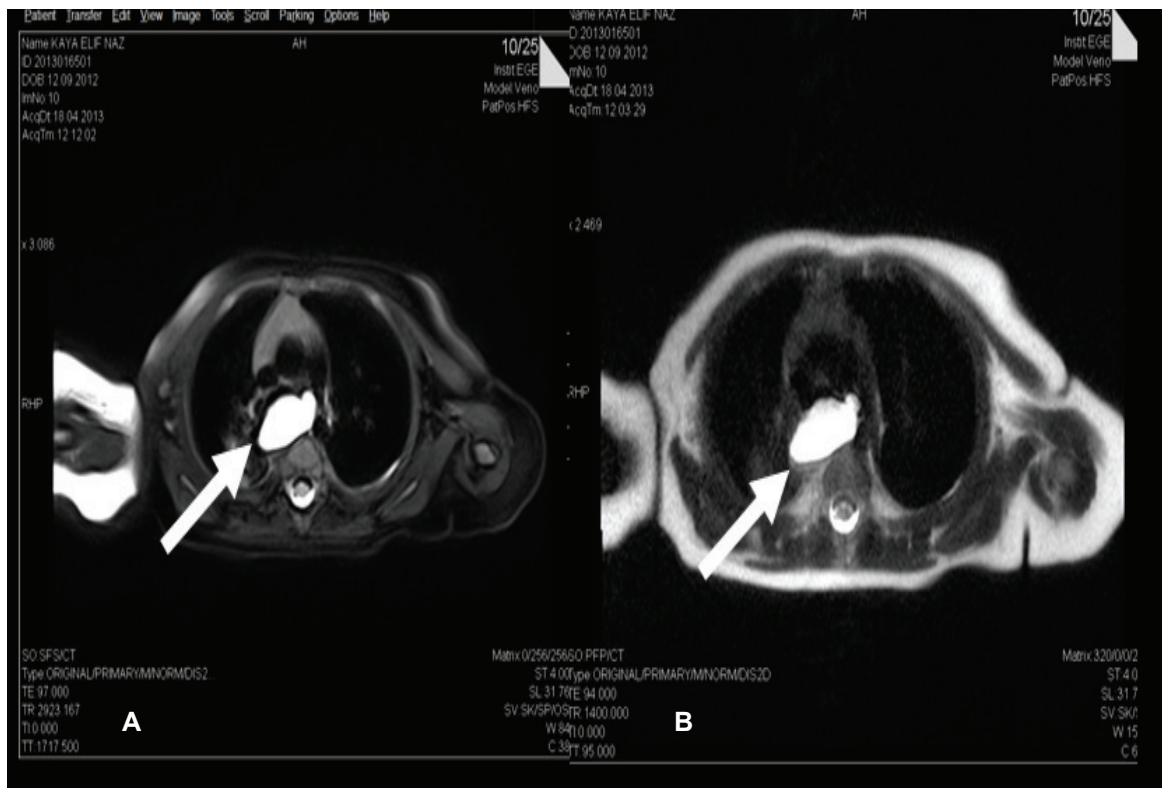
Şekil 3a,b: Yüksek rezolüsyonlu toraks bilgisayarlı tomografisi. Mediastende 22 x 18 x 14 mm boyutlarında keskin ve düzgün sınırlı, hipodens, trakea ve özefagusa bası yapan kitle izlenmektedir.

alan ve karınaya posteriorndan bası oluşturan paraözefageal mesafeye doğru uzanım gösteren 29x15x22 mm boyutlarında kitle lezyonu (olası bronkojenik kist ya da özefagus duplikasyon kisti) saptandı (Şekil 4a,4b).

Olguda solunum sıkıntısının devam etmesi ve BT-MRI görüntülerinde bası yapan kistik yapıda oluşumun saptanması üzerine lezyon cerrahi olarak çıkarıldı ve histopatolojik inceleme bronkojenik kist ile uyumlu bulundu. Kist çıkarıldıktan sonra olgunun akciğer dinleme bulguları belirgin geriledi. Solunum polikliniğinde izleme alınmak üzere hasta taburcu edildi.

Tartışma

Bronkojenik kistler embriyonik ön barsağın anormal tomurcuklanması sonucu gelişen ve nadir görülen benign konjenital lezyonlardır [1]. Bronkojenik kisti olan hastaların çoğu büyük çocuk ve erişkinlerdir. Olguların yaklaşık üçte ikisi asemptomatiktir. Asemptomatik olgularda kistler başka bir nedenle yapılan inceleme sırasında saptanır. Bronkojenik kistler intratorasik yapılara bası yaptıkları zaman doğumda veya infantil dönemde semptomatik olabilirler.



Şekil 4a,b. Toraks manyetik rezonans görüntüleme. Arka mediastende karına üzerine bası yapan ve paraözefageal mesafeye doğru da uzanım gösteren kitle izlenmektedir.

Kistler bir yaşından küçük çocuklarda dispne, siyanotik nöbetler, disfaji; büyük çocuklarda ise tekrarlayan pulmoner enfeksiyon, dispne, göğüs ağrısı, öksürük, stridor gibi bulgular ortaya çıkarabilir [1]. Nadiren ani solunum distressi ve ani siyanoz da olgularda gözlenebilir. Daha küçük yaşlarda, özellikle yenidoğanlarda sıklıkla stridor başlangıç semptomu olabilir. Busino ve ark. [3] bir yenidoğan olguda doğumdan itibaren başlayan stridor nedeniyle yapılan tetkiklerde bronkojenik kist saptadıklarını belirtmişlerdir.

Ülkemizden Koşar ve ark. [4], 15 yıllık sürede tanı koydukları 29 erişkin olguyu değerlendirdikleri serilerinde, başvuru semptomları olarak öksürük %92, balgam çıkarma %61, göğüs ağrısı %30, nefes darlığı %39 olarak bildirmişlerdir. Aynı yayında, erişkin döneme kadar herhangi bir bulgu vermeden gelen vakaların oranı %8 olarak belirtilmiştir. Özofagus yerleşimli olan bronkojenik kistlerde daha çok disfaji ve gastroözofageal reflü semptomları görülmektedir. Briganti ve ark [5] sundukları 3 yaşında bir kız

olguda disfaji nedenli endoskopi ve BT çekilmiş ve orta özafagus yerleşimli bronkojenik kist saptanmıştır. Ülkemizden Özkan ve ark. [6] ani gelişen solunum sıkıntısı ve siyanoz ile acil servise başvuran ve yabancı cisim aspirasyonu düşünülen ancak radyolojik görüntülemeye bronkojenik kist tanısı alan 19 aylık bir olgu bildirmişlerdir. Bizim olgumuz son 4 ay içinde 4 kez solunum sıkıntısı nedeniyle acil servise başvurmuş olup bronşiolit tanısıyla yoğun inhaler tedaviler verilmesine rağmen solunum sıkıntısı devam etmekteydi. Ayrıca, bronkojenik kistin özefagusa yaptığı bası nedeniyle gastro-özefageal reflüye sekonder kusma öyküsü de mevcuttu.

Bronkojenik kistlerin anormal tomurcuklanma karına ya da ana bronş seviyesinde olursa yerleşim alt mediastende, subkarinal bölgede ve daha distal seviyede olursa yerleşim intraparankimal bölgede olmaktadır [7]. Parenkimal yerleşimli bronkojenik kistler genellikle trakeabronşiyal ağaçla komşuluk gösterir. Akciğer parankiminde yerleşim gösterdiklerinde genelde alt loblarda yer alırlar. Bronkojenik kistlerin çoğu karına çevresinde paratrakeal, trakeo-bronşiyal veya subkarinal bölgede yerleşir. Kistlerin yaklaşık yarısından fazlası posterior mediastende, %14'ü superior mediastende ve %35'i de perikarinal alanda yer alır Nadiren servikal, larengial ve diyafragmada olduğu gibi atipik bölgelerde de yerleşebilir [8]. Abdominal ve cilt yerleşimleri de literatürde bildirilmiştir [9]. Bizim olgumuzda da lezyon literatürle uyumlu olarak mediasteninin sağ tarafında paratrakeal alanda yerleşmişti. Ayrıca, bronjenik kist trakeabronşiyal ağaçla ilişkili olup hava yollarına bası yapmaktaydı.

Bronkojenik kistler homojen düzgün sınırlı, yuvarlak-oval olup nonkalsifiye yapıdadırlar. Sıklıkla trakea ve ana bronşlarla yakın ilişkili olup kistlerin çapları 2-10 cm arasında değişebilir. Olgumuzda saptanan bronkojenik kist mediastende 29x15x22 mm boyutlarında keskin, düzgün sınırlı ve hipodens görünümdeydi.

Bronkojenik kistleri solunum yollarına yapmış oldukları bası ile en sık görülen komplikasyonu tekrarlayan akciğer enfeksiyonlardır. Pnomotoks, plörezi, süperior vena kava sendromu, aritmi, pulmoner arter stenozu, miyokard infarktüsü daha nadir görülen komplikasyonlarıdır [10].

Bronkojenik kistlerin ayırıcı tanısında trakeal divertiküler oluşumlar, lenfoepitelyal kistler, laringosel, faringosel, tiroid adenomları düşünülmelidir [11]. Ayrıca kistik lezyon olması nedeniyle akciğer abseleri, hidatik kist, lobar amfizem, tüberküloz da ayırıcı tanıda yer almalıdır. Yabancı cisim aspirasyonları en çok karışabilen durumlardandır. Yapılan bronkoskopik incelemelerde yabancı cisme rastlanılmaz ise, bu olgularda kistik oluşumlar mutlaka göz önünde bulundurulmalıdır. Tanısı postero-anterior ve lateral akciğer grafilerine ek olarak baryumlu özefagus pasaj grafisi, toraks BT ve MRI ile konulabilmektedir. Prenatal dönemde de tanı konulabilir. Antenatal evrede tanı alan olgular operasyon ile asemptomatik hale gelmektedirler. Diğer birçok hastalıkta olduğu gibi mediastendeki kistik oluşumların tanısında da ayrıntılı anamnez ve fizik bakının yeri çok önemlidir. Özellikle yoğun tedaviye rağmen yakınmaları devam eden olgularda ayırıcı tanıda bronkojenik kistler de akla gelmelidir.

Bronkojenik kistlerin çoğu asemptomatik olsa da semptomların ağırlığı ve oluşabilecek komplikasyonlar nedeniyle tedavide cerrahi eksizyon önerilmektedir. Fakat bazı yayınlarda, eğer olgu asemptomatik ise izlem tarzında konservatif yaklaşımlar da önerilmektedir [12]. Hastaların yönetimi ve izleminde tam eksizyon yapılmadıysa tekrarlayan P-A akciğer grafileri ile izlem önerilmektedir. Bizim hastamızda kist çıkarılmış ve tam bir klinik yanıt alınmıştır.

Sonuç olarak, tekrarlayan hışıltılı çocuk nedeniyle tetkik edilen olgularda mediastinal kistik kitleler de ayırıcı tanıda yer almalıdır. Çekilen direkt radyografide trakea yerleşimine dikkat edilmelidir. Hışıltılı çocuk izleminde semptomların sıklığına ve tedavi yanıtına önem verilmelidir. Klinik yanıtın olmadığı olgularda ileri radyolojik görüntüleme yöntemleri ile kesin tanı konulmalıdır. Erken tanı ile kronik akciğer hastalığı gelişimi önlenir.

Çıkar İlişkisi: Yazarlar çıkar ilişkisi olmadığını beyan eder.

Kaynaklar

1. Kravitz RM. Congenital malformations of the lung. *Pediatr Clin North Am* 1994;41:453-472.
2. Durancerau ACH, Deslauriers J. Foregut cysts of the mediastinum in the adult. In: Shields TW, ed. *Mediastinal surgery*. Philadelphia: Lea and Febiger, 1991; 305:13-15.
3. Busino RS, Quraishi HA, Cohen IT. Stridor secondary to a bronchogenic cyst in a neonate. *Ear Nose Throat J* 2011;90:8-10.
4. Koşar A, Tezel C, Orki A, Kiral H, Arman B. Bronchogenic cysts of the lung: report of 29 cases. *Heart, Lung and Circulation* 2009;18:214-218.
5. Briganti V, Molle P, Miele V, Vallasciani S, Calisti A. Intramural esophageal bronchogenic cyst: an unusual cause of dysphagia in pediatric patients. Report of a case. *Cir Pediatr* 2003;16:99-101.
6. Özkan A, Okur M, Kaya M, Küçük A. A case of bronchogenic cyst mimicking foreign body aspiration. *Pediatr Emer Care* 2013;29: 833-835.
7. Nuchtern JG, Harberg FJ. Congenital lung cysts. *Semin Pediatr Surg* 1994;3:233-243.
8. Coselli MP, de Ipolyi P, Bloss R, Diaz RF, Fitzgerald JB. Bronchogenic cyst above and below the diaphragm: report of 8 cases. *Ann Thoracic Surg* 1987;44:491-495.
9. Özel SK, Kazez A, Köseogullari AA, Akpolat N. Scapular bronchogenic cysts in children: case report and review of the literature. *Pediatr Surg Int* 2005;21:843-845.
10. LimaBem F, Ayadi-Kaddour A, Djilani. Pulmonary and mediastinal bronchogenic cysts: a clinicopathologic study of 33 cases. *Lung* 2008;186:55-61.
11. Yerman HM, Holinger LD. Bronchogenic cyst with tracheal involvement. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1990;99:89-93.
12. Bolton JW, Shahian DM. Asymptomatic bronchogenic cysts: what is the best management? *Ann Thorac Surg* 1992;53:1134-1137.