

Tekrarlayan Hışıltının Nadir Bir Nedeni Olarak Pulmoner Arter Slingi

PULMONARY SLING AS A RARE CAUSE OF RECURRENT WHEEZING

Arzu BABAYİĞİT¹, Duygu ÖLMEZ¹, Nevin UZUNER¹, Özkan KARAMAN¹, Gül SAYLAM¹, Nurettin ÜNAL¹, Handan ÇAKMAKÇI²

Dokuz Eylül Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı
Dokuz Eylül Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyodiagnostik Anabilim Dalı

ÖZET

Pulmoner vasküler sling, sol pulmoner arterin sağ pulmoner arterden çıkıp trakea etrafında bir halka ve basıya neden olduğu çok nadir olarak rastlanan gelişimsel konjenital vasküler bir anomalidir. Burada; tekrarlayan hışıltı ve alt solunum yolu enfeksiyonları nedeni ile hastanemize gönderilen ve pulmoner vasküler sling tanısı almış 13 aylık bir erkek hasta sunuldu. Hastanın baryumlu özefagus grafisinde özefagus anterior lateral kesiminde indentasyon izlendi ve toraks manyetik rezonans görüntüleme ve anjiyografi tetkikleri ile de pulmoner arter slingi tanısı doğrulandı. Operasyondan hemen sonra hastanın semptomları düzeldi. Sonuç olarak, tekrarlayan hışıltı ve alt solunum yolu enfeksiyonu olan çocuk hastalarda, pulmoner vasküler sling ayırıcı tanılar arasında düşünülmelidir.

Anahtar sözcükler: Pulmoner vasküler sling, çocuk, hışıltı, pnömoni

SUMMARY

Pulmonary vascular sling is a rare congenital condition in which the left pulmonary artery arises from the right pulmonary artery forming a sling around the trachea causing tracheal compression. We report a 13-month-old male patient with pulmonary vascular sling who was referred to our hospital because of recurrent wheezing and frequent lower respiratory tract infections. Barium-esophagography showed an indentation at the level of the anterior lateral segment of esophagus and thorax magnetic resonance imaging and angiography confirmed the diagnosis of pulmonary vascular sling. Relief of symptoms was achieved immediately after surgery. Therefore, in children with recurrent wheezing and lower respiratory tract infections, pulmonary vascular sling should be considered in the differential diagnosis.

Key words: Pulmonary vascular sling, child, wheezing, pneumonia

Arzu BABAYİĞİT

Dokuz Eylül Üniversitesi

Tıp Fakültesi

Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları AD

İnciraltı, 35340, İZMİR

Tel: (232) 4123660

(232)4123661

Faks: (232) 2599723

e-posta: arbabayigit@yahoo.com

Pulmoner arter slingi, sol pulmoner arterin sağ pulmoner arterden çıkıp, trakea ve özafagus arasından ilerleyerek sol akciğer hilusuna ulaşarak sağ ana bronş ve trakeada basıya neden olduğu çok nadir olarak rastlanan gelişimsel vasküler bir anomalidir. İnfant döneminde ciddi havayolu obstrüksiyonu bulgularına neden olur (1,2). Sunulan vaka, tekrarlayan hışıltı ve alt solu-

num yolu enfeksiyonlarının nedeni araştırılırken, vasküler ringler içinde en az rastlanamı olan pulmoner sling tanısı almış bir hastadır.

OLGU SUNUMU

Onüç aylık erkek hasta, öksürük ve hırıltı şikayetleri ile başvurdu. Öyküsünden benzer şikayetlerin 2,5 ay-

lıktan itibaren nerede ise her ay tekrarladığı, her seferinde öksürük, nefes darlığı ve hırıltılı solunum nedeni ile hastaneye yatırılarak nebulize beta-2 agonist ve steroid tedavilerinin uygulandığı ancak tekrarlayan hışıltı etiolojisine yönelik ileri tetkiklerinin yapılmadığı öğrenildi. Özgeçmişinde yedi kez hışıltı, üç kez pnömoni nedeni ile hastaneye yatırılması dışında özellik yoktu. Hastanın fizik muayenesinde ekspiriumu belirgin olarak uzun, akciğer oskültasyonunda bilateral yaygın sibilan ronküsler mevcut idi. Diğer sistem bakırlarında patolojik bulgu yoktu.

Hastanın yapılan tetkiklerinde tam kan sayımı normal sınırlarda, C-reaktif protein: 1,26 mg/dL idi. Ön-arka akciğer grafisinde bilateral peribronşial kalınlaşmalar dışında özellik yoktu. Hışıltı etiolojisine yönelik yapılan tetkiklerinde Ig A: 74 mg/dL (N: 14-159 mg/dL), Ig M: 148 mg/dL (N: 43-207 mg/dL), Ig G: 865 mg/dL (N: 345-1236 mg/dL), Ig E: 45 IU/mL (N: 0-230 IU/mL), spesifik Ig E (Yumurta, inek sütü, inhalan allerjenler): Negatif, ter testi: 28mEq/L, PPD: 9x9mm idi. Özefagus mide duodenom grafisinde özefagus anterior lateral kesimindeki indentasyon vasküler ring ile uyumlu bulunan hastanın, bunun üzerine yapılan ekokardiyografik incelemesinde sol pulmoner sling, minimal mitral yetmezlik ve ince restrikte patent foramen ovale saptandı (Şekil 1).

Toraks manyetik rezonans incelemesi ve anjiyografi tetkiki de pulmoner sling ile uyumlu bulundu (Şekil 2). Elektif şartlarda, göğüs kalp damar cerrahisi ekibi tarafından pulmoner arter rekonstrüksiyonu yapılan hasta, postoperatif altıncı ayında olup, halen ataksız olarak izlenmektedir.

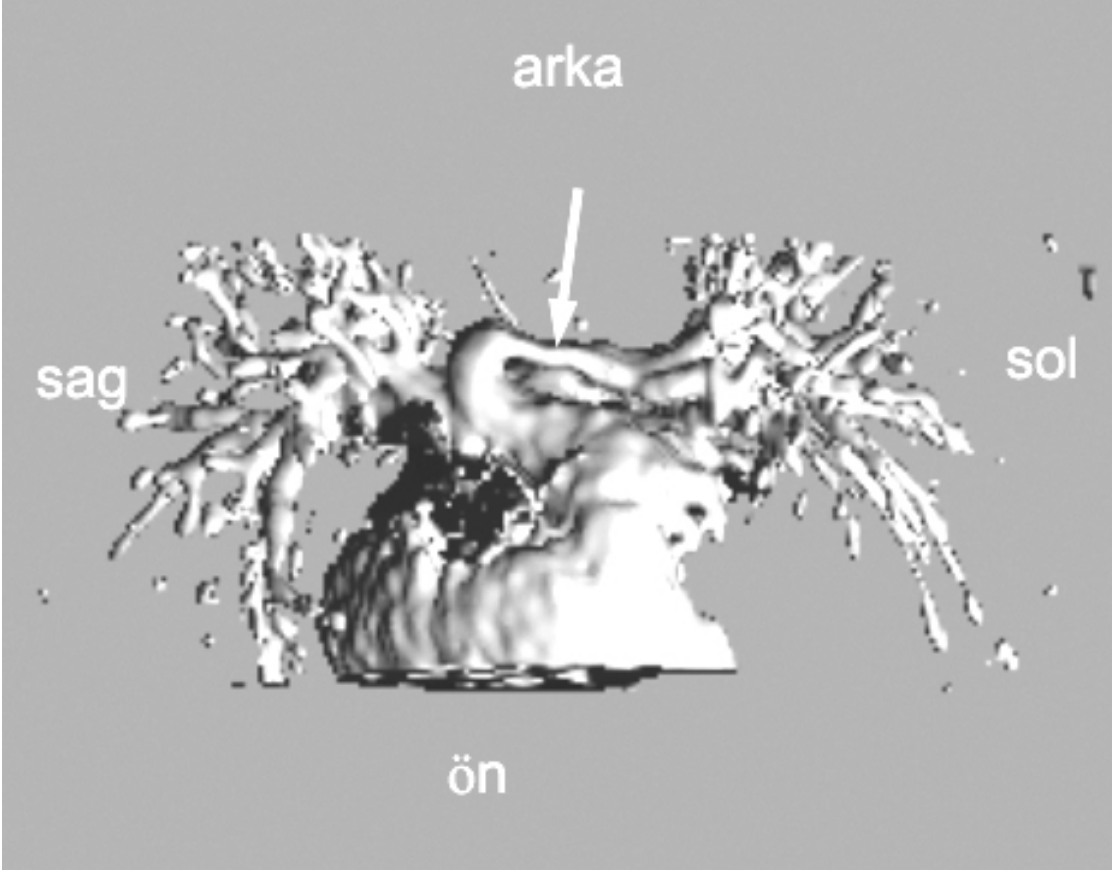
TARTIŞMA

Aortik ark ve pulmoner arterin konjenital anomalileri, infant döneminde havayolu obstrüksiyonunun önemli bir nedenidir. Bu anormal damarlar trakea ve özefagusu çevreleyip, bası oluşturdukları için vasküler ring olarak adlandırılırlar. Vasküler ringler içinde en nadir olarak rastlanan, altıncı brankial arkin anormal gelişimi sonucu oluşan aberan sol pulmoner arter (Pulmoner sling) dir. İlk vaka 1897 yılında rapor edilmiştir (3).

Vasküler ring varlığı saptanan hastalarda, semp-tomların başlangıç yaşı ve ağırlığı, trakea ve özefagus düzeyinde oluşan vasküler basının derecesine bağlıdır. Trakeal kompresyon nedeni ile oluşan solunum sistemi bulguları, tanı anında vasküler ringli olguların %70-97'sinde mevcuttur. Olguların yaklaşık olarak dörtte birinde disfaji de solunum sistemi bulgularına eşlik edebilir (4,5). Bizim hastamız da solunum sistemi bulguları, tekrarlayan hışıltı ve alt solunum yolu enfeksiyonları etiolojisini aydınlatmak için yapılan ileri tetkikler sonucunda pulmoner sling tanısı almıştı ancak hastamız da eşlik eden disfaji şikayeti yoktu. Stridor, hışıltı, öksürük, taşipne ve tekrarlayan alt solunum yolu enfeksiyonları vasküler ring tanısı alan hastalarda sıkça rastlanan bulgulardır (6,7). Bizim hastamızda ise, stridor ve disfaji hiçbir dönemde ortaya çıkmamış olup, sık tekrarlayan hışıltı atakları ve üç kez alt solunum yolu enfeksiyonu geçirme öyküsü mevcuttu.



Şekil 1. Baryumlu özefagus grafisinde özefagus anterior lateral kesiminde ok ile gösterilen indentasyon vasküler ring ile uyumlu idi.



Şekil 2. Toraks manyetik rezonans anjiyografi tetkikinde sol pulmoner arterin aberan pulmoner arterle uyumlu olacak şekilde orta hattın sağına gidip anterior kesiminden döndüğü izlendi, bu görüntü aberan sol pulmoner arter, pulmoner sling ile uyumlu bulundu.

Vasküler ring tanısı koymada akciğer grafisi, baryumlu özefagus grafisi, bilgisayarlı tomografi, manyetik rezonans görüntüleme, anjiyografi, bronkoskopi ve ekokardiyografi tetkikleri kullanılabilir. Akciğer grafisi, tanı için sınırlı fayda sağlayabilmektedir (5). Sunulan hastanın akciğer grafisinde peribronşial kalınlaşmalar dışında özellik saptanmamıştı ve direk grafi tanı için yardımcı bir tetkik olmamıştı. Vasküler ring tanısı alan hastaların %90'ından fazlasında özefagogramda vasküler kompresyon gösterilebilmektedir (4). Nitekim, bizim hastamızda da vasküler ring tanısı

baryumlu özefagus grafisi ile konmuş, anatomik ayrıntılar ekokardiyografi, manyetik rezonans görüntüleme ile kesinleştirilmişti. Son yıllarda, vasküler ring tanısında manyetik rezonans görüntülemenin güvenilirliği ve diğer tetkiklerden üstünlüğünü vurgulayan yayınlar artmaktadır (8,9).

Vasküler ring tanısı alan çocuklarda medikal veya cerrahi tedavi kararı, semptomların şiddetine göre belirlenir. Ciddi solunum sıkıntısı, sık tekrarlayan alt solunum yolu enfeksiyonları, apne, disfaji, beslenme güçlüğü veya aspirasyon pnömonileri erken cerrahi

endikasyonları olarak kabul edilmektedir. Ancak bizim hastamız gibi semptomatik olan tüm pulmoner arter sling tanısı almış çocuklar için erken cerrahi düzeltme önerilmektedir (10). Pulmoner arter sling nedeni ile opere edilmiş çocukların %10'unda rezidüel trakeal bası veya trakeomalazi nedeni ile havayolu obstrüksiyonu ve solunum sıkıntısı, operasyonda sonra aylarca devam edebilmektedir (5). Hastamızda ise, operasyon sonrası semptomlar tamamı ile düzelmiş idi.

Uygun operasyonlar ile uzun dönem prognozu tartışılmaz olarak mükemmel olan vasküler anomalilerin erken tanısı büyük önem arz etmektedir. Bu vaka infant döneminde tekrarlayan hışıltı veya akciğer enfeksiyonu olan hastaların vasküler ring yönünden mutlaka tetkik edilmesi gereğini vurgulamak için sunulmuştur.

KAYNAKLAR

1. Braunstein PW Jr, Sade RM. Vascular malformations with airway obstruction. In: Othersen HB Jr, ed. *The Pediatric Airways*. Philadelphia: WB Saunders, 1991; 81-96.
2. Baspınar O, Karaaslan S, Oran B, Reisli I, Keles S, Baysal T. Pulmonary vascular sling with aberrant right upper lobe pulmonary artery in a child. *Anadolu Kardiyol Dergisi* 2003;3 :370.
3. [Fiore AC](#), [Brown JW](#), [Weber TR](#), [Turrentine MW](#). Surgical treatment of pulmonary artery sling and tracheal stenosis. *Ann Thorac Surg* 2005; 79:38-46; 38-46.
4. Chun K, Colombani PM, Dudgeon DL, Haller JA Jr. Diagnosis and management of congenital vascular rings: A 22-year experience. *Ann Thorac Surg* 1992; 53:597-603.
5. Backer CL, Ilbawi MN, Idriss FS, DeLeon SY. Vascular anomalies causing tracheoesophageal compression. Review of experience in children. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1989; 97:725-731.
6. Buckwalter J, Sasaki C, Kopf G, Hellebrand W, Kleinman C, Markowitz R. Aortic wheeze: Intermittent tracheal obstruction caused by a rare aortic arch anomaly. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1983; 92:383-386.
7. Van Aalderen WMC, Hoekstra MO, Hess J, Gerritsen J, Knol K. Respiratory infections and vascular rings. *Acta Paediatr Scand* 1990; 79:477-480.
8. Beekman RP, Hazekamp MG, Sobotka MA et al. A new diagnostic approach to vascular rings and pulmonary slings: the role of MRI. *Magn Reson Imaging* 1998;16:137-145.
9. Haramati LB, Glickstein JS, Issenberg HJ, Haramati N, Crooke GA. MR imaging and CT of vascular anomalies and connections in patients with congenital heart disease: significance in surgical planning. *Radiographics* 2002; 22:337-47; 348-349.
10. Valletta EA, Pregarz M, Bergamo-Andreis IA, Boner AL. Tracheoesophageal compression due to congenital vascular anomalies (vascular rings). *Pediatr Pulmonol* 1997;24:93-105.