

Tekrarlayan Lenfadenit Ayırıcı Tanısında Brankial Kleft Kisti

Branchial Cleft Cyst in the Differential Diagnosis of Recurrent Lymphadenitis

Elif KILIÇ KÖNTE¹, Saliha KANIK YÜKSEK², Aslınur ÖZKAYA PARLAKAY², Belgin GÜLHAN²,
Adalet Elçin YILDIZ³, Ayşe Selcen ERDOĞAN⁴

¹Sağlık Bilimleri Üniversitesi Ankara Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Hematoloji Onkoloji Eğitim Araştırma Hastanesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Kliniği, Ankara, Türkiye

²Sağlık Bilimleri Üniversitesi Ankara Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Hematoloji Onkoloji Eğitim Araştırma Hastanesi, Çocuk Enfeksiyon Hastalıkları Kliniği, Ankara, Türkiye

³Sağlık Bilimleri Üniversitesi Ankara Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Hematoloji Onkoloji Eğitim Araştırma Hastanesi, Radyoloji Bölümü, Ankara, Türkiye

⁴Sağlık Bilimleri Üniversitesi Ankara Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Hematoloji Onkoloji Eğitim Araştırma Hastanesi, Patoloji Bölümü, Ankara, Türkiye



ÖZ

Aynı bölgede bir veya birden fazla servikal lenf nodu inflamasyonu olarak adlandırılan lenfadenit; çocukluk çağında sıklıkla enfeksiyöz ajanların neden olduğu bir durumdur. Epstein-Barr Virus (EBV), Cytomegalovirus (CMV), Human Immunodeficiency Virus (HIV), Human Herpes Virus 6 (HHV-6) gibi enfeksiyöz mononükleoz yapan etkenlerin yanı sıra bakteriyel ajanlardan; grup A streptokoklar, *S. aureus*, *S. epidermidis*, tüberküloz ve tüberküloz dışı mikobakteriler, *F. tularensis*, grup B streptokoklar ve yersinia etkenler arasında yer alır. Non-enfeksiyöz lenfadenopati nedenleri daha az sıklıkla görülmekle birlikte maligniteler, kollajen vasküler hastalıklar, ilaçlar ve lenfadenopatiyi taklit eden kitleler şeklinde sınıflandırılabilir. Bu olgu sunumunda daha önce bilinen bir hastalığı olmayan ve boyunda tekrarlayan şişlik nedeniyle başvuran 15 yaşındaki erkek çocukta, lenfadeniti taklit eden komplike brankial kleft kistine dikkat çekmek amaçlanmıştır.

Anahtar Sözcükler: Çocuk, Lenfadenit, Brankial kleft kisti

ABSTRACT

Lymphadenitis is a condition characterized by inflammation of one or more lymph nodes in the same region and is generally caused by infectious agents in childhood. The Epstein-Barr Virus (EBV), Cytomegalovirus (CMV), Human Immunodeficiency Virus (HIV), Human Herpes Virus 6 (HHV-6) as well as the causative agent of infectious mononucleosis, and bacterial agents such as Group A Streptococcus, *S. aureus*, *S. epidermidis*, tuberculous and non-tuberculous mycobacteria, *F. tularensis*, Group B Streptococcus and Yersinia are among the factors. Non-infectious etiology of cervical adenitis less frequent but includes malignancies, collagen vascular diseases, drugs, and masses simulating adenopathy. Here, a 15-year-old male patient, who presented with a complaint of recurrent swelling in the neck with no previous known disease, is presented to draw attention to a complicated branchial cleft cyst mimicking lymphadenitis.

Key Words: Child, Lymphadenitis, Branchial cleft cyst

GİRİŞ

Aynı bölgede bir veya birden fazla lenf nodu inflamasyonu olarak adlandırılan lenfadenit; çocukluk çağında sıklıkla enfeksiyöz ajanların neden olduğu bir durum olup akut veya kronik olabilir (1,2). Servikal lenfadenit, genellikle üst solunum yolu viral enfeksiyonlarına bağlı olarak retikülo endotelial sistem aracılığıyla oluşan sekonder inflamasyon sonucu servikal bölgede ortaya çıkmaktadır (3).

Enfeksiyöz lenfadenitler; bakteriyel (*S. aureus*, grup A Streptokoklar, *Mycobacterium tuberculosis*, tüberküloz dışı mikobakteriler, *Bartonella henselae*, gram (-) enterik bakteriler, anaeroblar, *Haemophilus influenzae*, *Yersinia pestis*, *Actinomyces israeli*, *Corynebacterium diphtheriae*, *F. tularensis*, brusella, sfiliz), viral (Epstein-Barr Virus [EBV], Cytomegalovirus [CMV], Human Immunodeficiency Virus [HIV], Human herpesvirus 6 [HHV-6] gibi enfeksiyöz mononükleoz yapan etmenler ile birlikte

kabakulak virüsü, rubella, Herpes simplex virüs, varicella), fungal (histoplasmozis, kriptokokkus, asperjilloz, kandida, sporotrichosis) veya paraziter (*Toxoplasma gondii gibi*) etkenlere bağlı olarak oluşabilir.

Non-enfeksiyöz lenfadenopati nedenleri arasında; maligniteler (Hodgkin lenfoma, non-hodgkin lenfoma, nöroblastom, lösemi, metastatik karsinom, tiroid kanseri), ilaçlar (izoniazid, fenitoin), serum hastalığı, kollajen vasküler hastalıklar (juvenil romatoid artrit, sistemik lupus eritematosus) veya lenfadenopatiyi taklit eden kitleler (kistik higroma, brankial kleft kisti, tiroglossal kanal kisti, epidermoid kist, sternokleidomastoid kasi tümörü) yer alır (4). Bu yazıda boyunda tekrarlayan şişlik nedeniyle başvuran ve lenfadeniti taklit eden komplike brankial kleft kisti tanısı alan 15 yaşındaki erkek olguya ait bulgular sunulacaktır.

OLGU

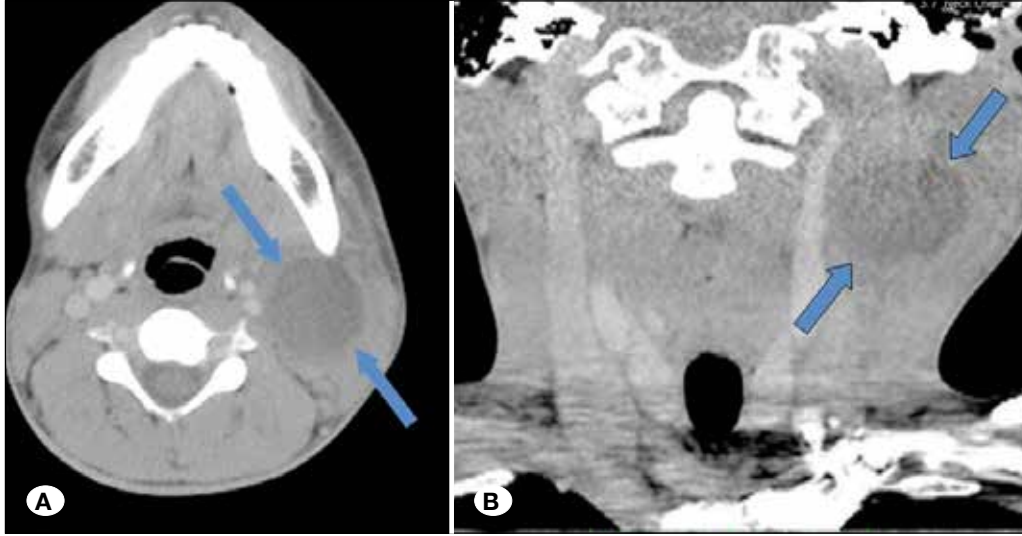
Aralarında akrabalık olmayan 40 yaşındaki anne ve 47 yaşındaki babanın yaşayan üç çocuğundan en büyüğü olarak doğan ve öncesinde sağlıklı olan erkek hastanın öyküsünden; bir yıl önce boyunda şişlik nedeniyle gittiği dış merkezde sol servikal lenfadenit tanısı aldığı öğrenildi. Yapılan fizik inceleme ve radyolojik görüntüleme bulgularına göre başka bir bölgede lenf nodu saptanmayan hastada, etiyojiye yönelik tetkiklerinde enfeksiyöz neden saptanmadığı, drene edildikten sonra lenf nodunun küçüldüğü, drenaj materyalinden bakılan sitolojik incelemede malignite bulgusuna rastlanmadığı ve taburcu edildiği öğrenildi. Ancak taburculuk sonrasında insizyon yerinden pürülan akıntısının devam ettiği ve ilk başvurusundan 4 ay sonra benzer şikayetle gittiği başka bir dış merkezde intravenöz antibiyotik tedavisi aldığı aile tarafından belirtildi. Hasta bir yıl sonra yine aynı bölgede şişlik nedeniyle hastanemize başvurdu. Fizik muayenesinde; sol servikal bölgede 4x3 cm boyutunda apse formasyonu, sol sterno kleido mastoid (SKM) boyunca daha yoğun olan hassasiyet ve kızarıklık şeklinde yumuşak doku enfeksiyonu ve eşlik eden milimetrik boyutlu lenf nodları dışında anormal bulgu saptanmadı. Hastaya yapılan boyun ultrasonografisinde sol SKM kasında miyozit ve kasın orta 1/3 kesimine komşu apse ve lenfadenopatilerin saptanması üzerine hasta sol servikal apse ve miyozit tanılarıyla yatırıldı. Yatış laboratuvarında; hemoglobin 14.7 (12.8-16) mg / dl, beyaz küre sayısı 11 x 10³ (3.6-9.1) / µlt, trombosit sayısı 28.9 x 10³ (150000-450000) / µlt, eritrosit sedimentasyon hızı 8 mm (0-20) / saat ve C reaktif protein 1.41 (0-0.8) mg/dl olmakla birlikte biyokimyasal parametreleri normaldi. Periferik yaymasında polimorf nükleer hücre hakim iken atipik veya malign hücre görülmedi. Hastaya intravenöz sulbaktam-ampisilin ve klindamisin tedavileri başlandı. Sistemik lenfadenopati taraması açısından abdomen ultrasonografisi yapılan hastanın batin ve inguinal bölgede lenfadenopatisinin olmadığı görüldü. Viral (HIV, EBV, CMV) serolojileri toksoplasma ile tularemi aglütinasyon testleri negatif sonuçlandı. Takibinde sol submandibular bölgedeki apse drene edildi. Drenaj materyalinden gönderilen tularemi ve tüberküloz

tetkikleri negatif olarak sonuçlandı. Gönderilen pü kültüründe üreme olmadı. Drenaj materyalinin sitolojik değerlendirmesinde malign hücreye rastlanmadı. Takiplerinde antibiyoterapi ile lenf nodunun küçüldüğü görüldü. Bu süreçte hastanın dış merkezde lenf nodu drene edilmeden önce çekilen boyun bilgisayarlı tomografisi radyoloji bölümünce tekrar değerlendirildi ve solda servikal zincirde SKM kası posteriorunda brankial kleft kisti ile uyumlu lezyon saptandı (Şekil 1A, B). Pü materyalinden yapılan patolojik değerlendirmede çok sayıda köpüksü histiyosit, keratinöz materyal, yassı epitel hücreleri, nötrofiller, dev hücreler ve iltihabi granülasyon dokusu ile uyumlu morfolojide doku fragmanları saptandı. Sitomorfolojik bulgular öncelikle rüptüre brankial kleft kisti lehine yorumlandı. Hasta antibiyoterapi sonrasında Kulak Burun Boğaz kliniğince opere edilmesi planlanarak ayaktan takip edilmek üzere taburcu edildi.

TARTIŞMA

Brankial kleft kistleri (BKK) sıklıkla pedyatrik popülasyonda ortaya çıkan ve embriyolojik gelişim sırasında brankial yarıkların tam kapanmaması nedeniyle oluşan konjenital boyun lezyonlarıdır. Çoğu enfekte oluncaya kadar asemptomatiktir. Dört tipe ayrılan BKK'leri, dördüncü BKK dışında genellikle SKM kasın önünde yer alır (5). BKK'leri kendi arasında embriyonel gelişim kökenlerine göre sınıflandırılmaktadır. Birinci BKK sıklıkla kulak kenarında prezente olur ve kendi içerisinde iki tipe ayrılır (6). Tip-1 birinci BKK anomalileri, ektodermal orijinli olup eksternal kulak kanalının duplikasyon anomalisidir. Tip-1 kistler genellikle parotis gland çukuru içinde fasial sinire yakın yerleşir. Bütün ektoderm ve mesoderm tabakalarını içeren Tip-2 BKK ise daha sık görülür ve genellikle mandibular açıda prezente olur. Bu kistler parotis gland çukurunun medialinde veya fasial sinir lateralinde yerleşir. İkinci BKK, brankial kleft anomalilerinin en sık (%95) görülen tipidir (7). İkinci BKK, mandibuler açının inferiorunda ve SKM kasın anteriorunda yerleşimlidir. Kistin sinüs traktı boynun derin yapılarından geçerek tonsiller fossa önüne açılır (8). Nadiren kistin epitelyum tabakasından kaynaklı maligniteler ortaya çıkabilir. Üçüncü BKK, ikinci BKK'ne göre boynun daha inferiorunda ve SKM kasının önünde yerleşir ve tirohyoid membran veya piriform sinüste sonlanır. Dördüncü BKK ise çok nadir görülmekle birlikte bu kistin traktı SKM kası medialinden inferiora uzanarak hipoglossal ve süperior larengal sinirin komşuluğundan geçerek piriform sinüsün apeksinde veya servikal özefagusta sonlanır (9).

İnspeksiyon ve palpasyon ile klinik olarak BKK'den şüphelenilen olgularda lezyonun karakterize edilmesinde radyolojik yöntemler yardımcıdır (3). Kistlerin tanısında ilk tercih edilmesi gereken radyolojik yöntem, kolay ulaşılabilmesi, radyasyon içermeyen bir yöntem olması nedeniyle ultrasonografidir. Komplike olmayan BKK'lerin tanısında çoğunlukla ultrasonografi yeterlidir. Ancak komplike olmuş BKK'lerin tanısında bilgisayarlı tomografi (BT) ve manyetik rezonans görüntüleme (MRG) gibi diğer kesitsel yöntemlere başvurulabilir. MRG, radyasyon maruziyetine yol



Şekil 1: Aksiyel (A) ve koronal (B) kontrastlı boyun BT görüntülerinde; solda arka submandibuler bölgede, submandibuler bez posteriorunda ve SKM kası posteromedialinde yerleşim gösteren, kası deplase eden, ince kontrastlanan duvar yapısı seçilen kistik lezyon (oklar) izlenmektedir. Aynı tarafta cilt altı yağ dokuda inflamasyon lehine kalınlaşma ve dansite artışı da görülüyor.

açmaması, kistlerin uzanımlarını ve eşlik eden apse formasyonları daha iyi göstermesi nedeniyle BT'ye üstündür. Ancak MRG'de sedasyon gerekliliği (<6 yaş) ve incelemenin uzun sürmesi BT'nin daha fazla tercih edilmesine neden olmaktadır. BKK'lerinin tedavisi, komplikasyon oranı düşük olan cerrahi eksizyondur (4). BKK'lere bağlı rekürren enfeksiyonlar ve enfeksiyona ikincil cilde fistül traktı oluşabilir. Rekürren enfeksiyonlar özellikle parotis içi yerleşimli olan BKK anomalilerinde cerrahi tedaviyi zorlaştırabilmektedir. Üçüncü ve dördüncü BKK'lerin akut enfeksiyonlarında farengial ödeme bağlı hava yolu obstrüksiyonu ve yutma problemleri oluşabilir. BKK'lerin yönetimi eğer varsa öncelikle enfeksiyon kontrolü ile başlar. Enfeksiyonun kontrolünden sonra kistler tekrarlayan enfeksiyon atakları ve bu atakların komplikasyonlarının önlenmesi açısından genellikle eksize edilir (10).

Bu yazıda sunulan olgu, BKK'lerin genellikle prezente olması beklenen dönemde yani geç çocukluk döneminde başvurmuştur. Ancak aynı bölgede üç kez tekrarlayan ve servikal lenfadenit olarak yorumlanan ataklar ve bu ataklara bağlı apse ve ikincil fistül gelişimi gibi komplikasyonların gelişmiş olması nedeniyle geç tanı almış bir olgu olduğunu belirtmek gerekir. Uygun tedaviye rağmen gerilemeyen ya da akıntısı devam eden tüm lateral boyun kitlelerinde malignite ile birlikte konjenital anomaliler akla gelmelidir. Hastanemize başvurusundan sonra olası enfeksiyöz ve malign nedenlerin ekarte edilmesinin ardından aynı bölgede tekrarlayan ve servikal lenfadenit olarak yorumlanan atakları nedeniyle olası doğumsal anomaliler akla gelerek radyolojik açıdan tekrar değerlendirilmesi uygun görülmüş ve bu değerlendirme sonucunda hasta komplike BKK tanısı almıştır.

Bu olgu, enfekte olan konjenital boyun kitlelerinin lenfadenitler ile karışabileceğine ve uygun tedaviye rağmen gerilemeyen ya da tekrarlayan lenfadenit ön tanısında alta yatan nedenin konjenital anomaliler olabileceğine dikkat çekmek amacıyla sunulmuştur.

KAYNAKLAR

1. Bergelson J, Zaoutis T, Shah SS. Acute localized lymphadenopathy of the head and neck (cervical lymphadenopathy) In: Pediatric Infectious Diseases-The Requisites in Pediatrics. 1st ed. Philadelphia: Mosby-Elsevier, 2008.
2. Healy CM, Baker CJ. Cervical lymphadenitis. In: Feiginand Cherry's Textbook of Pediatric Infectious Diseases. 7th ed. Philadelphia: Elsevier Saunders, 2014:175.
3. Rizzi MD, Wetmore RF, Potsic WP. Differential diagnosis of neck masses. In: Lesperance MM, Flint PW (eds). Cummings Pediatric Otolaryngology. Philadelphia, PA: Elsevier Saunders, 2015:chap 19.
4. Leung AK, Davies HD. Cervical lymphadenitis: Etiology, diagnosis, and management. Curr Infect Dis Rep 2009;11:183-9.
5. Martin KL. Cutaneous defects. In: Kliegman RM, Stanton BF, Geme JS, Schor NF (eds). Nelson Textbook of Pediatrics. 20th ed. Philadelphia, PA:Elsevier, 2016:3119-21.e1
6. Work WP. Cysts and congenital lesions of the parotid gland. Otolaryngol Clin North Am 1977;10:339-43.
7. Goff CJ, Allred C, Glade RS. Current management of congenital branchial cleft cysts, sinuses and fistulae. Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg 2012;20:533-9.
8. Lillehei C. Branchial anomalies neck cystsand sinuses. In: Coran A, Adzick NS, Krummel T, Laberge JM, Shamberger JM, Caldamone A (eds). Pediatric Surgery. 7th ed. St Louis: Elsevier, 2012:753-61.
9. Chen EY, Sie KCY. Developmental anatomy. In: Lesperance MM, Flint PW (eds). Cummings Otolaryngology. 1st ed. Philadelphia: Elsevier, 2015:2821-30.e1
10. Enepekides DJ. Management of congenital anomalies of the neck. Facial Plast Surg Clin North Am 2001;9:131-45.