

PRİMER İZOLE BİLATERAL FETAL HİDROTORAKSIN TEKRARLAYAN TORASENTEZLE BAŞARILI TEDAVİSİ: OLGU SUNUMU

Successful Treatment of Primary Isolated Bilateral Fetal Hydrothorax With Recurrent Thoracentesis: Case Report

Ethem Serdar YALVAÇ¹(0000 0001 9941 4999), Mustafa KARA²(0000-0003-2282-6850), Taylan ONAT³, Emre BASER³(0000-0003-3828-9631), Demet AYDOĞAN KIRMIZI³(0000-0001-7849-8214), Hakan YAKUT⁴ (0000-0002-3796-1812)

ÖZET

Bu sunumumuzda nadir bir durum olan primer bilateral fetal hidrotoraks olgusunu, literatür ile birlikte gözden geçireceğiz. Fetusa 33. gebelik haftasında tanı konmasından sonra, toplam 5 kere torasentez işlemi yapıldı. Hasta son adet tarihine (SAT) göre 40 hafta 3 günde normal doğum yaptı. İntrauterin torasentez yapılan bebek 56 gün hastanede yattıktan sonra taburcu edildi. Bu sunumda fetal hidrotoraks vakalarına genel bir literatür taramasıyla torasentez işlemi ve kısaca diğer tedavi yöntemlerini sunacağız ve fetal akciğerde biriken sıvının etyolojisini ve sonuçlarını gözden geçireceğiz.

Anahtar kelimeler: *Fetal hidrotoraks; Torasentez; Perinatal sonuçlar.*

ABSTRACT

In this report, we will review a rare case of primary bilateral fetal hydrothorax with the literature. After the diagnosis was made at 33 weeks of gestation, thoracentesis was performed 5 times in total. The patient had a normal delivery on 40 weeks and 3 days gestational age according to her last menstrual period (LMP). The baby whom had intrauterine thoracentesis had been hospitalized and discharged after 56 days. In this presentation, we will present a general literature review of fetal hydrothorax cases with thoracentesis and other treatment modalities, and we will review the etiology and results of the fluid that accumulates in the fetal lung.

Keywords: *Fetal hydrothorax; Thoracentesis; Perinatal outcomes.*

¹Bozok Üniversitesi Tıp Fakültesi Kadın Hastalıkları ve Doğum Anabilim Dalı, Yozgat.

²Bozok Üniversitesi Tıp Fakültesi Kadın Hastalıkları ve Doğum Anabilim Dalı, Yozgat.

³Bozok Üniversitesi Tıp Fakültesi Kadın Hastalıkları ve Doğum Anabilim Dalı, Yozgat.

⁴Bozok Üniversitesi Tıp Fakültesi Kadın Hastalıkları ve Doğum Anabilim Dalı, Yozgat.

Ethem Serdar YALVAÇ, Prof. Dr.
Mustafa KARA, Doç. Dr.
Taylan ONAT, Dr. Öğr. Üyesi
Emre BASER, Dr. Öğr. Üyesi
Demet A. KIRMIZI, Dr. Öğr. Üyesi
Hakan YAKUT, Araş. Gör.

İletişim:

Araş. Gör. Hakan YAKUT
Bozok Üniversitesi Tıp Fakültesi Kadın Hastalıkları ve Doğum Anabilim Dalı, Atatürk Bulvarı, 7. km., Erdoğlan Akdağ Kampüsü, Yozgat
Tel: +90 533 167 32 46
e-mail: hknykt@gmail.com

Geliş tarihi/Received: 27.02.2019

Kabul tarihi/Accepted: 17.04.2019

DOI: 10.16919/bozoktip.532972

Bozok Tıp Derg 2019;9(2):187-191
Bozok Med J 2019;9(2):187-191

GİRİŞ

Fetal hidrotoraks (plevral efüzyon) plevral boşlukta nonspesifik sıvı birikimi olarak tanımlanır [1]. Plevral boşluk, akciğer yüzeyi ile göğüs boşluğunu saran visseral ve paryetal plevra arasındaki boşluktur. Fetal hidrotoraks prenatal ultrasonografide, akciğerleri çevreleyen toraksta tek taraflı veya bilateral anekoik boşluk olarak görülür [1].

Fetal plevral efüzyon yaklaşık olarak 1/10.000-15.000 oranında görülen nadir bir konjenital anomalidir [2]. Primer fetal hidrotoraks lenfatik sistemin gelişimsel anomalisine bağlı olarak gelişen lenfatik kaçaktan kaynaklanır, çoğunlukla bir dışlama tanısıdır. Vakaların çoğu son trimesterde tanı alır [1]. Klinik seyir; spontan rezolüsyondan progresif bir artışla hidrops ve polihidramnios gelişimine veya yüksek preterm doğum riski ve intrauterin ölüme kadar değişir [3]. Fetal hidrotoraks % 57 ile 100 arasında perinatal mortaliteye sahiptir. Eğer hidrotoraks generalize hidropsa eşlik ediyorsa mortalite daha yüksektir. Perinatal ölümün asıl sebebi gelişmekte olan akciğerlere baskı yaparak pulmoner hipoplaziye neden olan intratorasik kompresyondur [4].

Plevral efüzyonun spontan rezolüsyonu bildirilmiştir [5]. Bununla birlikte, izole fetal plevral efüzyonlar veya hidrotoraks genellikle kötü sonuç verir. Mortalite teşhis anında 32. gebelik haftasından önce ise % 55 iken daha sonrasında tanı alanlarda % 30 oranındadır [6]. Hidrops ilişkili olduğunda mortalite % 100'e kadar yükselebilir [7]. Büyük plevral efüzyonlar, vena kava tıkanıklığı ve kardiyak kompresyon ile hidramniyoza neden olabilir [4, 8].

VAKA SUNUMU

Yirmi altı yaşında olan hastanın obstetrik anamnezinde 3. gebeliği idi. İlk gebeliğinde fetal hidrops nedeniyle 28. gebelik haftasında intrauterin gebelik kaybı yaşamış. İkinci gebeliğinde miad yarık damak-dudak anomalisi olan erkek bebek doğurmuş. Akraba evliliği olmadığı ve ebeveynlerin ailelerinde de anomalili bebek öyküsü olmadığı öğrenildi. Hastanın tarafımızca ilk muayenesi SAT'a göre 25 hafta 3 günlük iken yapıldı. Bu muayenede fetusun biyometrik ölçümleri 22 hafta ile uyumluydu ve herhangi bir anomaliye rastlanmadı.

Hastanın bu gebeliğinde yaptırdığı hemogram, biyokimya ve TORCH tetkik sonuçlarının normal olduğu görüldü. Rh uyumsuzluğu yoktu. Hastanın daha önceki gebeliklerinde ve bu gebeliğinde herhangi bir hastalık geçirmediği öğrenildi. İkinci trimester ayrıntılı ultrasonografi (USG) incelemesi normaldi. Hastanın 8 hafta sonraki muayenesinde fetal biyometrik ölçümler 31 hafta ile uyumluydu ve fetal hidrotoraks tanısı kondu. Sağ ve sol torasik boşlukta sırasıyla en geniş çapı 20 mm ve 5 mm olan mayi gözlemlendi (Resim 1 ve 2).



Fetal kalbin aksı hafif sola kaymıştı. Amniyon mayi normal olarak değerlendirildi, mide cebi ve üriner sistem normal olarak değerlendirildi. Fetal batında minimal asit izlendi. Fetusun doppler USG incelemesinde; orta beyin arteri (MCA) ölçümlerinde sistolik volüm 50,7 ml (1,27 mom), umbilikal arter ölçümlerinde S/D 4,5 RI 0,78 olarak saptandı ve gestasyonel haftasıyla uyumlu olduğu görüldü. Annenin Parvovirüs B19 ve HSV antikoru negatifti. Hastaya ve ailesine bilgi verilerek, gerekli onamlar alındı. Hazırlıklar sonrası 20 gauge amniyosentez iğnesiyle sağ torasik boşluktan 22 ml mayi aspire edildi. Mayi açık sarı renkte idi, pürülan veya mukoid karakterde değildi. Sıvının biyokimyasal özelliği serum vafında idi. Hastanın 10 gün sonraki muayenesinde sağ ve sol torasik boşlukta en geniş çapı sırasıyla 15mm ve 5 mm olan plevral sıvı olduğu gözlemlendi. Gerekli onam ve hazırlıklar sonrasında yine torasentez yoluyla plevradan 29 ml mayi aspire edildi. Hidrotoraksın tekrarlaması üzerine plevro-amniyotik şant yapılmasına karar verildi, fakat teknik yetersizlik sebebiyle uygulanamadı. Hastanın bir hafta sonraki muayenesinde yine bilateral plevral sıvı birikimi gözlemlendi. Umbilikal arter dopplerinde S/D 2,69, PI 0,98 RI 0,63 olarak ölçüldü ve normal olarak değerlendirildi. Amniyon sıvısı 4 kadranda toplam 25,5 cm idi ve artmış olarak değerlendirildi. NST reaktifti. Fetal sol ve sağ torasik boşluklardan toplam 45 ml seröz vasıfta sıvı aspire edildi. Daha sonraki haftalık muayeneleri normaldi. Sonraki iki muayenesinde polihidroamniyoz izlenmedi ve plevral sıvı ilk muayenede minimal, ikinci muayenede ise sağ ve sol torasik boşlukta en geniş çapı sırasıyla 10 mm ve 4 mm idi. Bir hafta sonraki muayenede hasta yatırılarak doğum hazırlığı ve intratorasik basıncı azaltmak amacıyla torasentez işlemi tekrarlandı. İlk gün sol torasik boşluktan 21 ml, 2 gün sonra da sağ torasik boşluktan 23 ml seröz karakterde sıvı aspire edildi. Hasta doğum için, üçüncü basamak yenidoğan yoğun bakım ihtiyacı gerekli olabileceğinden tersiyer bir merkeze yönlendirildi.

Hasta SAT'a göre 40 hafta 3 günlük iken tersiyer merkezde 3270 gr canlı bir kız bebek doğurdu. Yenidoğan hastanede yattığı süre içinde torasentez işlemine gerek olmadı, ancak postpartum 9. günde parasentez ile batından 40 ml mayi aspire edildi. İntrauterin hidrotoraks, pulmoner hipertansiyon, E.

Koli sepsisi ve asit tanılarıyla 56 gün yattıktan sonra sağlıklı bir şekilde taburcu edildi.

TARTIŞMA

Normal koşullarda, parietal plevranın mezotel hücreleri arasındaki küçük boşluklar (stoma) sıvının plevral boşluğa ve serbest dolaşımına izin verir. Bu stomalar, lenfatik kanallara boşalan ve daha sonra mediastinal lenf nodlarına drene olan lenfatik lakuna ile doğrudan iletişim kurarlar. Bu drenaj yolunda veya salgılanmasında bir bozulma varsa, lenf sıvısı plevral boşlukta toplanır [9]. Yenidoğanlarda en sık hidrotoraks nedeni olan şilotoraks, beslenme sonrası plevral sıvıda şilomikronların izlenmesiyle teşhis edilebilir [10]. Yenidoğan bebeklerde oral beslenmeyi takiben sıvı 42 mg/dl'den fazla trigliserid içeriyorsa ve hücre içeriğinde lenfosit oranı % 80'i aşıyorsa şilotoraks olarak nitelenir. Ancak intrauterin fetüs oral alamadığından ve lenfosit oranı da normal olarak % 80'den fazla olduğundan bu parametreler prenatal olarak kullanılamaz [4, 11]. Bununla birlikte şilotoraksın, intrauterin yaşam boyunca diğer hidrotoraks nedenlerinden ayrılması zordur [12].

Diğer ilişkili durumlar arasında kistik higroma, adenovirüs, parvovirüs B19 gibi konjenital enfeksiyonlar, HSV tip 1 ve bir dizi genetik sendromlar (Noonan ve Opitz-Frias hipertelorizm hipospadias sendromu) bulunur. Bu nedenle, izole plevral efüzyonun prenatal tanısı, fetal anatomi, ekokardiyografi ve fetal karyotipleme, maternal kan sayımı ve antikor tayini, TORCH ve parvovirus B19 ve Kleihauer- Betke testine ihtiyaç duyar [1].

Ultrason ve fetal kan örnekleme ile ilgili ayrıntılı bir araştırmaya rağmen, kardiyak anormallikler veya disritmi ile ilişkili olmayan immün olmayan hidropsların nedenleri, vakaların % 50'sinden fazlasında açıklanamayabilir [13]. Konjenital şilotoraks, pek çok açıklanamayan hidrops vakasının birincil nedeni olarak önerilmiştir. Fetal hidrotoraksın aspirasyonu, doğumdan hemen önce gerçekleştirildiğinde yenidoğan resüsitasyonunu kolaylaştırır. Sıvı, aspirasyondan 6 ila 48 saat sonra yeniden birikmeye başladığı için, pulmoner hipoplaziyi önlemek ve hidropsları ve hidramniyozları tersine çevirmek için uzun süreli

drenaj gereklidir [13, 14]. Son zamanlardaki deneysel çalışmalar, bazı konjenital şilotoraks vakalarının da genetik kaynaklı olabileceğini düşündürmektedir. Aslında, integrin alfa 9β1'den yoksun farelerde, şilotoraks geliştiği ve solunum yetmezliği ve ölüme neden olan lenfatik sistemin ve torakal kanalın defektif gelişimi görülmüştür [15].

Rustico ve arkadaşları yaptıkları bir derlemede, 27 haftalık ortalama gestasyonel yaşta hastalığın saptandığını ve fetusların % 22'sinde spontan regresyon gözlemlendiğini söylemişlerdir [1].

Klam ve arkadaşları spontan düzelme olasılığının en fazla olan olguların ikinci trimesterde (% 67), daha sık tek taraflı (% 65) olanlarda olduğunu ve birkaç hidropik fetüste bile plevral efüzyon gerilemesi olduğunu tanımlanmıştır [16].

Aksine, bazı hafif fetal hidrotoraks vakaları hidrops gelişmesiyle birlikte ciddi bir forma hızla ilerleyebilir. İntrauterin meydana gelen ölümlerin yaklaşık dörtte biri, doku hipoksisine ve asidemiye neden olan dolaşım bozukluklarından kaynaklanmaktadır. Ancak, postnatal ölümlerin çoğu pulmoner hipoplaziye bağlıdır [1].

Primer Fetal Hidrotoraksın (PFHT) klinik yönetiminde sık sonografik incelemeler gereklidir. Hastaneye yatış zorunlu değildir [17].

Torasentezin bir fetusun hayatta kalmasının nedeni olabileceğine karar vermek zordur [18]. Yine de bizim durumumuzda, terapötik müdahalenin, gebeliğin olumlu sonucu için gerekli olacağına karar verdik. Hipovolemi ve hipoproteinemi olasılığı, bizi kaygılandıran durumlar olmasına karşılık fetusun iyilik hali için bu durumları riske ettik. Fetal Hidrotoraks vakalarında bazı yaklaşımlar bulunmakla birlikte bizim için en uygun olanı tercih etmek durumunda kaldık. Torasentez işlemi, genel olarak plevral sıvıyı aspire etmek için 20 gauge spinal iğne kullanılarak ultrason kontrolü altında gerçekleştirilir. Çoklu aspirasyonlardan sonra, az sayıda plevral efüzyon intrauterin çözülebilir. Bununla birlikte, vakaların çoğunda, sıvının yeniden birikmesi aspirasyondan sonra 1 saat ile 10 gün arasında tekrar ortaya çıkar [19].

Prosedür, neonatal resüsitasyonu kolaylaştırmak için doğumdan önce akciğer genişlemesine izin vermek amacıyla zaman zaman kullanılmıştır [20, 21].

Aubard ve arkadaşlarının 17-37 hafta arasında yaptığı bir veya daha fazla torasentez sonrası klinik sonuçlar çok değişkendir. Tedavi edilen 29 olgunun 13'ünde (% 45) plevral efüzyon kötüleşerek fetal ölümle sonuçlandı; 7 (% 24) olguda plevral efüzyon olumlu bir sonuçla geriledi; 9 (% 31) olguda, durumun nüksüne rağmen iyi bir sonuç vardı. Hidrops varlığında, torasentez sonrası sağkalım oranı % 10, hidropik olmayan fetuslarda % 60 idi [3].

Torako-Amniyotik Şant işlemi, aspirasyondan sonra sıvı hızla biriktiği için, plevral efüzyonun tedavisi için daha uygun bir prosedür olarak uzun süreli drenaj sağlar ve ilk olarak Seeds and Bowes (1986) tarafından tanımlanmıştır. Fetal kanama, skar oluşumu ve konjesyon bantlarının oluşumuyla ilgili izole raporların yanı sıra şant ile ortaya çıkan en yaygın komplikasyonlar, membranların prematür rüptürü, erken doğum ve koryoamniyonit gibi görünmektedir [22].

Plörodezis işlemi ise, ilk kez Tanemura ve ark. ve Okawa ve diğ. tarafından erişkin hastalarda deneyime dayanarak, OK-432'nin fetal intraplevral enjeksiyonu ile (glikolitik ve enzimatik özelliklere sahip bir avirülan streptokokal hücrelerin liyofilize şekli), plevranın enflamatuar hücreler tarafından infiltre olmasına ve akciğer yüzeyine yapışmasına neden olur. Amniyotik sıvı embolisine bağlı bir anne ölüm vakası, OK-432 plörodezisten 8 hafta sonra meydana geldi. Muhtemelen prosedürle ilgisi olmamasına rağmen, bu ölüm açıkça kayda değer bir endişe kaynağıdır [23-25]. Plörodezis ile ilgili bir başka yol da, trombotik bir yama oluşturmak amacıyla, maternal kanın intraplevral olarak enjekte edilmesidir [26].

PFHT hamileliğin sonlandırılması için bir sebep değildir. Rahim içi takip için tüm invaziv olmayan ve invaziv prenatal tanı ve tedavi yöntemleri mevcut olmalıdır. Hidrotoraks semptomları ortaya çıktığı zaman torasentez yapılmalıdır. Hızlı sıvı birikmesi veya erken gebelikte tespiti durumunda, pleuroamniyotik şant seçimi tercih edilen yöntemdir.

Fetal Hidrotoraks, primer sezaryen için, özellikle de başarılı intrauterin tedaviden sonra bir endikasyon değildir. Tedavi ve takip gebeliğin sonuna kadar yapılmalıdır. Bununla birlikte, invaziv prosedürlerin neden olduğu iyatrojenik olarak beklenmedik maternal veya fetal komplikasyonlarla karşılaşılabilineceğini ebeveynlere anlatmak gerekir [18].

Fetal hidrotoraks varlığında, fetal problemler göz önünde bulundurulmalıdır. Bunlar, eritroblastozis veya non-immün nedenlerin yanı sıra intrauterin enfeksiyonların neden olduğu fetal hidropsu içerir. Bizim vakamızda izole bilateral fetal hidrotoraks mevcuttu.

Plevra dekompresyonu, torasentez veya plöroamniyotik şant ile sağlanabilir. Torasentez teknik olarak basittir ve hayat kurtaran bir acil durum prosedürü olabilir; bununla birlikte, efüzyonlar hızlı bir şekilde yeniden tekrarlama eğilimindedir.

Plöroamniyotik şant daha invaziv olmakla birlikte potansiyel olarak uzun süreli bir tedavi avantajına sahiptir.

Plevral efüzyonun prenatal tanısı kötü prognoz taşır. Bu fetüslerin yaklaşık yarısı exitus olur. Hidrops varlığı ve erken gebelik döneminde hidrotoraks saptanması sağkalmı olumsuz etkileyen ek faktörlerdir [2].

KAYNAKLAR

1. Rustico, M.A., et al., Fetal pleural effusion. Prenatal diagnosis, 2007. 27(9): p. 793-799.
2. Longaker, M.T., et al., Primary fetal hydrothorax: natural history and management. Journal of pediatric surgery, 1989. 24(6): p. 573-576.
3. Aubard, Y., et al., Primary fetal hydrothorax: a literature review and proposed antenatal clinical strategy. Fetal diagnosis and therapy, 1998. 13(6): p. 325-333.
4. Castillo, R.A., et al., Pleural effusions and pulmonary hypoplasia. American journal of obstetrics and gynecology, 1987. 157(5): p. 1252-1255.
5. Pijpers, L., et al., Noninvasive management of isolated bilateral fetal hydrothorax. American Journal of Obstetrics & Gynecology, 1989. 161(2): p. 330-332.
6. Hagay, Z., et al., Isolated fetal pleural effusion: a prenatal management dilemma. Obstetrics and gynecology, 1993. 81(1): p. 147-152.
7. Prontera, W., et al., Ex utero intrapartum treatment (EXIT) of severe fetal hydrothorax. Archives of Disease in Childhood-Fetal and Neonatal Edition, 2002. 86(1): p. F58-F60.
8. Roberts, A., et al., Fetal hydrothorax in the second trimester of pregnancy: successful intra-uterine treatment at 24 weeks gestation. Fetal Diagnosis and Therapy, 1986. 1(4): p. 203-209.
9. Sahn, S.A., The pathophysiology of pleural effusions. Annual review of medicine, 1990. 41(1): p. 7-13.
10. Chernick, V. and M.H. Reed, Pneumothorax and chylothorax in the neonatal period. The Journal of pediatrics, 1970. 76(4): p. 624-632.
11. Büttiker, V., S. Fanconi, and R. Burger, Chylothorax in children: guidelines for diagnosis and management. Chest, 1999. 116(3): p. 682-687.
12. Rodeck, C.H., et al., Long-term in utero drainage of fetal hydrothorax. New England Journal of Medicine, 1988. 319(17): p. 1135-1138.
13. Nicolaides, K., et al., Fetoscopy in the assessment of unexplained fetal hydrops. BJOG: An International Journal of Obstetrics & Gynaecology, 1985. 92(7): p. 671-679.
14. Petres, R.E., F.O. Redwine, and D.P. Cruikshank, Congenital bilateral chylothorax: Antepartum diagnosis and successful intrauterine surgical management. JAMA, 1982. 248(11): p. 1360-1361.
15. Huang, X., et al., Fatal bilateral chylothorax in mice lacking the integrin $\alpha\beta 1$. Molecular and cellular biology, 2000. 20(14): p. 5208-5215.
16. Klam, S., J.-L. Bigras, and L. Hudon, Predicting outcome in primary fetal hydrothorax. Fetal diagnosis and therapy, 2005. 20(5): p. 366-370.
17. Harms, E., et al., [Prenatally diagnosed fetal hydrothorax]. Vol. 133. 1985. 701-3.
18. Becker, R., et al., Successful treatment of primary fetal hydrothorax by long-time drainage from week 23. Fetal diagnosis and therapy, 1993. 8(5): p. 331-337.
19. King, P., et al., Recurrent congenital chylothorax. Prenatal diagnosis, 1991. 11(10): p. 809-811.
20. Mandelbrot, L., et al., Reversal of fetal distress by emergency in utero decompression of hydrothorax. American Journal of Obstetrics & Gynecology, 1992. 167(5): p. 1278-1283.
21. Gonen, R., et al., The effect of drainage of fetal chylothorax on cardiac and blood vessel hemodynamics. Journal of clinical ultrasound, 1993. 21(4): p. 265-268.
22. Picone, O., et al., Thoracoamniotic shunting for fetal pleural effusions with hydrops. American Journal of Obstetrics & Gynecology, 2004. 191(6): p. 2047-2050.
23. Tanemura, M., et al., A case of successful fetal therapy for congenital chylothorax by intrapleural injection of OK-432. Ultrasound in obstetrics & gynecology, 2001. 18(4): p. 371-375.
24. Okawa, T., et al., A new fetal therapy for chylothorax: pleurodesis with OK-432. Ultrasound in obstetrics & gynecology, 2001. 18(4): p. 376-377.
25. Chen, M., et al., Fetal OK-432 pleurodesis: complete or incomplete? Ultrasound in obstetrics & gynecology, 2005. 26(7): p. 791-793.
26. Parra, J., et al., A new successful therapy for fetal chylothorax by intrapleural injection of maternal blood. Ultrasound in obstetrics & gynecology, 2003. 22(3): p. 290-294.