

# Oktreotid ile Tedavi Edilen Konjenital Şilotoraks Olgusu

## A Case of Congenital Chylothorax Treated with Octreotide

Özmert Muhammet Ali Özdemir, Hacer Ergin, Kazım Küçüktaşçı, Özlem Şahin, Nergül Çördük\*, Eda Karadağlı\*\*, Başak Yıldırım\*\*\*

Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi, Neonatoloji Bilim Dalı, Denizli, Türkiye

\*Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Cerrahisi Anabilim Dalı, Denizli, Türkiye

\*\*Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı, Denizli, Türkiye

\*\*\*Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kadın Hastalıkları ve Doğum Anabilim Dalı, Denizli, Türkiye



### Öz

Konjenital şilotoraks plevra boşluğunda şilöz sıvı birikmesidir. Yenidoğan döneminde plevral efüzyonun en sık sebebidir. Şilotoraksın geleneksel tedavisi konservatiftir. Konservatif tedavi göğüs drenajı, anne sütünün kesilmesi, orta zincirli trigliserid içeren formula veya total parenteral nutrisyon uygulanmasıdır. Son yıllarda şilotoraks tedavisinde uzun etkili somatostatin analogu olan ve lenfatik sıvı üretimini azaltarak etki gösteren oktreotid, yeni tedavi seçeneği olarak kullanılmaktadır. Prenatal ultrasonografide sağ akciğerde plevral efüzyon saptanan term bebekte, doğum sonrası konjenital şilotoraks tanısı kesinleştirildi. Öncelikle göğüs tüpü uygulandı, daha sonra orta zincirli trigliserid zengin formula başlandı. Şilöz sıvı birikimi azalmayan olguya subkutanöz oktreotid tedavisi uygulandı ve yan etki görülmeden şilotoraks tedavi edildi. İnatçı şilotoraks olgularında cerrahi uygulamaya alternatif, umut verici bir tedavi seçeneği olan oktreotid, yenidoğan bebeklerde güvenle kullanılabilir.

### Abstract

Congenital chylothorax, an abnormal accumulation of chylous fluid in the pleural space, is a common cause of pleural effusion in the neonatal period. The traditional management of chylothorax is conservative. Conservative therapy includes chest drainage, cessation of breast feeding, and using of medium chain triglycerides or total parenteral nutrition. Recently, octreotide, a long-acting somatostatin analog reduced lymphatic fluid production, has been used as a new treatment strategy in the therapy of chylothorax. In a full term newborn with right pleural effusion diagnosed by prenatal ultrasound, congenital chylothorax is confirmed after birth. This patient was initially treated with chest tube insertion. Afterward a medium-chain-triglyceride-enriched formula was initiated. Subcutaneous octreotide was administered to the patient because of non-responded to conservative therapy. The chylothorax resolved promptly with no observed side effects. Octreotide appears to have a good safety drug in newborn infants and remains a promising alternative therapy to surgery for intractable cases with chylothoraces.

### Anahtar kelimeler

Konjenital şilotoraks, oktreotid

### Keywords

Congenital chylothorax, octreotide

Geliş Tarihi/Received : 30.09.2013

Kabul Tarihi/Accepted : 10.03.2014

DOI:10.4274/jcp.83803

Yazışma Adresi/Address for Correspondence:

Dr. Kazım Küçüktaşçı, Pamukkale  
Üniversitesi Tıp Fakültesi, Neonatoloji Bilim  
Dalı Denizli, Türkiye  
Tel.: +90 533 668 61 17  
E-posta: drkkucuktasci@gmail.com

© Güncel Pediatri Dergisi, Galenos Yayınevi tarafından basılmıştır.  
© The Journal of Current Pediatrics, published by Galenos Publishing.

### Giriş

Plevral boşlukta lenfatik sıvı birikmesi olarak tanımlanan şilotoraks, konjenital veya edinsel olabilir. Şilotoraks, yenidoğanlarda plevral efüzyonun en sık sebebi olup; 1/10,000-15,000 sıklıkta görülmektedir. Konjenital şilotoraks lenfanjiomatozis ve lenfanjektazi gibi lenfatik sistem bozuklukları, konjenital kalp hastalığı, mediastinal malignensi,

kromozomal bozukluklar (trizomi 21, Turner ve Noonan sendromu) ve H-tipi trakeoözefageal fistül ile ilişkilendirilmiştir. Edinsel şilotoraks ise lenfatik sistemin kardiyotorasik cerrahi veya travmaya bağlı zedelenmesi, vena kava süperiorunda basınç artışı nedeniyle görülebilmektedir (1-4). Mortalite oranı %15-57 arasında değişmektedir (3).

Tedavide orta zincirli trigliserit (OZT) ve yüksek protein içeren diyet, total parenteral beslenme, plevral drenaj, mekanik ventilasyon ve kimyasal/mekanik plörodezis gibi konserve yaklaşımlar uygulanmaktadır. Konservatif tedaviye yanıt vermeyen olgularda torakoskopik plörodezis, plöroperitoneal pompa, cerrahi abrazyon, torasik kanalın ligasyonu ve azigos ven ile duktus torasikusun anastomozu cerrahi tedavi seçeneklerini oluşturmaktadır. Son yıllarda konservatif tedaviye yanıt vermeyen inatçı şilotoraks olgularında cerrahi öncesi somatostatin analogu olan okterotid ile başarılı sonuçlar alındığı ve yenidoğanlarda güvenli bir şekilde kullanılacağı belirtilmektedir (2-4).

Bu yazıda, konjenital şilotoraks tanısı konulan ve okterotid ile başarılı bir şekilde tedavi edilen term yenidoğan olgusu sunulmuştur.

### Olgu Sunumu

Gebeliğinde bir problem saptanmayan anneden miadında, 3020 gr ağırlığında, sezeryan ile hastanemizde doğan erkek bebekte, fetal ultrasonografide (USG) plevral efüzyon olduğu öğrenildi. Doğumda 1. ve 5. dakika Apgar skorları sırasıyla 9 ve 10 saptanan, takipte oksijen ihtiyacı olmayan bebeğin kalp tepe atımı 144/dk, solunum sayısı 48/dk, vücut ısısı 36,5 °C, oksijen saturasyonu %96 idi. Fizik muayenede sağ akciğer orta-alt lobta solunum seslerinde azalma dışında patolojik bulgu saptanmayan olgu, anne sütüyle beslenmeye başlandı. Laboratuvar incelemesinde lökosit 3100/µL (dört günlükken 3630/µL, dokuz günlükken 4230/µL, 13 günlükken 5460/ µL), Hb 19,1 g/dL, platelet 259000/µL, periferik yaymasında %60 polimorfonükleer lökosit, %40 lenfosit, absölu lenfosit sayısı 1240/µL saptandı, toksik granülasyon yoktu. Böbrek (üre 21 mg/dL, kreatinin 0,6 mg/dL, Na 138 mmol/L, K 4,8 mmol/L, Cl 109 mmol/mL), karaciğer (AST 48 IU/L, ALT 15 IU/L, ALP 218 IU/L, total protein 5,2 g/dL, albumin 3,6 g/dL) ve tiroid fonksiyon testleri

(serbest T4 0,7 ng/dl, TSH 3 µU/mL) normaldi. İmmünglobulin (Ig) A 9 mg/dL (1,3-53), IgG 359 mg/dL (251-906), IgM 19,2 mg/dL (6,3-25), IgE 2,3 IU/mL (0,04-1,28) değerleri normal aralıkta saptandı. Ekokardiyografi küçük sekundum atriyal septal defekt dışında normaldi. Toraks tomografisinde sağ akciğerde plevral efüzyon dışında patolojik bulgu yoktu. Viral seroloji (toksoplazma, rubella, sitomegalovirüs, herpes simpleks virüs) negatifti. Kromozom analizi normaldi. Akciğer grafisinde sağ akciğer orta-alt zonda plevral efüzyon görünümü (Resim 1) saptanan olgunun toraks USG'sinde sağ hemitoraksta üç cm kalınlığa ulaşan efüzyon izlendi. Anne sütüyle beslenirken efüzyonun artması üzerine postnatal üçüncü gün sağ akciğere toraks tüpü takılarak süt görünümünde plevral sıvı drenajı sağlandı (Resim 2) ve ampirik parenteral antibiyoterapi (sulbaktam-ampisilin ve netilmisin) başlandı. Plevral sıvı analizi (lökosit 9820/mL, %94 lenfosit, trigliserid 372 mg/dL (ND <100 mg/dL), kültür negatif) şilotoraksla uyumluydu. Ülkemizde MCT içeren formula mama bulunamadığından; anne sütüyle beslenme kesilerek total parenteral beslenmeye



Resim 1. Sağ hemitoraksta plevral efüzyon görünümü



**Resim 2.** Şilöz sıvı görünümü



**Resim 3.** Oktreotid tedavisinin 40. gününde akciğer grafisi görünümü

geçildi. Buna rağmen 20-30 ml/kg/gün miktarda şilöz drenajı devam eden olguya postnatal 23. günde yurtdışından sağlanabilen MCT içeren formula mama (Portagen®; Mead Johnson Nutrition, USA) başlandı. Bu tedaviyle de plevral efüzyonu azalmayan olguya, 30 günlükken 10 µg/kg/gün subkutan dört dozda oktreatid başlandı. Oktreatid dozu kademeli olarak 30 µg/kg/güne artırıldı ve bu dozda tedavinin sekizinci gününde şilöz drenajın sonlandığı görüldü (Resim 3). Oktreatid, doz azaltılarak tedavinin 17. gününde kesildi. Tedavi sırasında geçici hipotiroidi dışında yan etki görülmedi (serbest T4 1 ng/dL, TSH 11,5 µIU/mL). Oktreatid tedavisi kesildikten bir hafta sonra tiroid fonksiyon testlerinin normalleştiği görüldü. Takibinde plevral efüzyonu tekrarlamayan olgu, aylık kontrollere çağrılarak, 47 günlükken MCT içeren formula mama ile şifayla taburcu edildi. Postnatal üç aylıkken fizik muayenesi ve büyümesi normal olduğundan; yaşına uygun formula mamaya geçilerek portagen mama kesildi.

### Tartışma

Konjenital şilotoraks solunum sıkıntısı, sıvı-elektrolit imbalansı, malnütrisyon ve persistan immün yetmezlik gibi komplikasyonlara neden olan ciddi bir hastalıktır (3,5). Plevral sıvı incelemesinde süt rengi görünüm, trigliserid >100 mg/dL, hücre sayısı >1000/mL, lenfosit >%80 ve steril kültür ile tanı konulmaktadır (4). Olgumuzun plevral sıvı incelemesinde süt rengi görünüm, lökosit 9820/mL, %94 lenfosit, trigliserid 372 mg/dL saptanırken; kültürde üreme olmadı.

Şilotoraks olgularında genellikle uygulanan plevral drenaja bağlı olarak lenfosit kaybı gerçekleşir ve lenfopeni görülmektedir. Bununla beraber lenfosit maturasyonunda yetersizlik ve hücre ölümünde artış lenfopeniye sebep olabilen diğer mekanizmalardır (6). Doğduğunda lökopeni (lenfopeni) saptanan olgumuzda, postnatal 13. günde lenfopeninin düzeldiği görüldü. İmmün yetmezlik açısından değerlendirilen olgunun immünglobulinleri normaldi.

Şilotoraks tedavisinde öncelikle konservatif yaklaşım uygulanmaktadır. Plevral efüzyonun drenajı sağlanır, volüm ve protein kaybı yerine konular ve enteral beslenme kesilip total parenteral beslenme başlanır veya MCT içeren formula mama verilir (3,7,8). Konservatif tedaviye rağmen şilöz sıvı drenajı 10 ml/kg/günün üzerinde olan olgular tedaviye yanıtız

kabul edilmekte (8); şilöz drenaj 2-5 haftadan uzun süre devam ederse cerrahi uygulama önerilmektedir (9). Konjenital şilotoraks tanısı konulan olgumuza anne sütü kesilerek total parenteral beslenme başlandı. Göğüs tüpü ile plevral sıvı drenajı uygulanmasına rağmen yaklaşık 20-30 ml/kg/gün civarında şilöz sıvı drenajı görülen olguya 23 günlükken MCT içeren formula mama başlandı.

Son yıllarda şilotoraks tedavisinde cerrahiden önce oktreatid tedavisi ile başarılı sonuçlar alındığı rapor edilmiştir. Somatostatinin uzun etkili sentetik analogu olan oktreatidin şilotoraksta etki mekanizması tam olarak bilinmemekle birlikte, splenik damarlarda vazokonstriksiyona neden olarak intestinal kan akımını azaltmaktadır. Bunun sonucunda gastrointestinal motilite, gastrik, pankreatik ve biliyer sekresyonlar, torasik duktusta lenfatik akım ve intestinal yağ emilimi azalmaktadır (2,-4,8-10). Oktreatidin dozu, uygulama şekli ve süresine dair görüş birliği yoktur. Subkutan uygulama dozu 2-68 µg/kg/gün 1-4 doz iken; iv dozu 0,3-10 µg/kg/saat (7,2-240 µg/kg/gündür) (4,10). Tedaviye düşük dozdan başlanıp, 1-3 gün ara ile doz artırılması önerilmektedir (8,9). Genellikle intravenöz yol tercih edilmekle birlikte; literatürde subkutan yolla tedavi edilen olgular da bulunmaktadır (10).

Oktreatidin yan etkileri aritmi, enjeksiyon bölgesinde ağrı, bulantı, kusma, diyare, konstipasyon, hiperglisemi, hipoglisemi, halsizlik, geçici karaciğer fonksiyon bozukluğu, geçici hipotiroidizm ve nekrotizan enterokolit olarak bildirilmektedir (2,4,8-10). Preterm yenidoğanlarda oktreatide bağlı hipoksemi, pulmoner hipertansiyon ve prematüre retinopatisi gelişebileceği belirtilmiştir. Tedaviye ne kadar devam edileceği tartışmalı olmakla birlikte; şilöz mayi drenajının kesilmesinden sonra 3-5 gün daha devam edilmesi önerilmektedir (2,4). Ortalama tedavi süresi 3-43 gün arasında değişmektedir (10). Konservatif tedaviye yanıt alınamayan olgumuza 30 günlükken oktreatid 10 µg/kg/gün subkutan dört dozda başlandı. Oktreatid dozu 30 µg/kg/güne

çıkılınca efüzyonun azaldığı, tedavinin sekizinci gününde efüzyonun kaybolduğu görüldü. Oktreatid, doz azaltılarak tedavinin 17. gününde kesilirken; geçici hipotiroidizm dışında belirtilen yan etkiler görülmedi. MCT formula mama ile taburcu edilen olgunun izleminde büyüme-gelişme ve muayenesinin normal seyrettiği görüldü.

### Sonuç

Bu olgu sunumuyla konservatif tedaviye yanıt vermeyen konjenital şilotoraks olgularında cerrahi uygulama öncesi oktreatid tedavisinin denenebileceği ve uygulama kolaylığı yönünden subkutan yolun tercih edilebileceği önerilmektedir.

### Kaynaklar

1. Wolff AB, Silen ML, Kokoska ER, Rodgers BM. Treatment of refractory chylothorax with externalized pleuroperitoneal shunts in children. *Ann Thorac Surg* 1999;68:1053-7.
2. Shah D, Sinn JK. Octreotide as therapeutic option for congenital idiopathic chylothorax: a case series. *Acta Paediatr* 2012;101:151-5.
3. Rasiah SV, Oei J, Lui K. Octreotide in the treatment of congenital chylothorax. *J Paediatr Child Health* 2004;40:585-8.
4. Das A, Shah PS. Octreotide for the treatment of chylothorax in neonates. *Cochrane Database Syst Rev* 2010;8:CD006388.
5. Kaneko M, Kanai Y, Go H, Imamura T, Momoi N, Hosoya M. Five cases of congenital chylothorax treated by intrapleural minocycline. *AJP Rep* 2012;2:25-8.
6. Wasmuth-Pietzuch A, Hansmann M, Bartmann P, Heep A. Congenital chylothorax: lymphopenia and high risk of neonatal infections. *Acta Paediatr* 2004;93:220-4.
7. Horvers M, Mooij CF, Antonius TA. Is octreotide treatment useful in patients with congenital chylothorax? *Neonatology* 2012;101:225-31.
8. Çelik M, Bülbül A, Uslu S, Sever N, Can E. Yenidoğan şilotoraks tedavisinde oktreatid kullanımı: Olgu sunumu. *Ş.E.E.A.H. Tıp Bülteni* 2012;46:26-9.
9. Moreira-Pinto J, Rocha P, Osorio A, Bonet B, Carvalho F, Duarte C, et al. Octreotide in the treatment of neonatal postoperative chylothorax: report of three cases and literature review. *Pediatr Surg Int* 2011;27:805-9.
10. Foo NH, Hwang YS, Lin CC, Tsai WH. Congenital chylothorax in a late preterm infant and successful treatment with octreotide. *Pediatr Neonatol* 2011;52:297-301.