

**Torakoamniyotik Şant Uygulaması: Tersiyer Bir Merkezde 10 Vakanın Gözden Geçirilmesi****Thoracoamniotic Shunt Procedure: Review of 10 cases at a Tertiary Setting**

Cantekin İSKENDER, Oktay KAYMAK, Sabri CAVKAYTAR, Şevki ÇELEN, Turhan ÇAĞLAR, Nuri DANIŞMAN

Zekai Tahir Burak Kadın Sağlığı Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ankara, Türkiye

**ABSTRACT**

**Aim:** To review the perinatal outcome in fetal thoracoamniotic shunt procedures.

**Material and Methods:** Thoracoamniotic shunt-treated cases were screened retrospectively between 2008-2013. The current status of the parents of the newborn was learned by phone interview.

**Results:** The study included 10 patients in whom thoracoamniotic shunt was inserted. Fetal diseases requiring thoracoamniotic shunt procedure were primary pleural effusion in 9 (90%) cases and type 1 congenital cystic adenomatoid malformation (CCAM) in 1(10 %) case. In 2 cases (20%) the procedure was repeated due to dislodgement of the shunt. Fetal loss was observed in 1 case after the procedure. 3 fetuses died in the neonatal period and infancy. There were four cases of preterm delivery and 2 cases of fetal hydrops during follow-up. It was learned that neonate with CCAM had been operated at 1st week postpartum and there is currently no additional problem. No complications occurred in the remaining cases in the newborn period.

**Conclusion:** Thoracoamniotic shunt procedure might have a positive influence on perinatal outcomes in fetuses with hydrothorax. Therefore, the family should be offered this procedure as an intrauterine fetal treatment option in fetuses with hydrothorax.

**Key Words:** Fetal hydrothorax, thoracoamniotic shunt, perinatal outcome.

**ÖZET**

**Amaç:** Torakoamniyotik şant uygulanan vakaların gözden geçirilmesi ve perinatal sonuçlarının değerlendirilmesi.

**Gereç ve Yöntemler:** 2008-2013 yıllarında torakoamniyotik şant işlem uygulanan vakalar retrospektif olarak tarandı. Yeni doğanların güncel durumları ise ailelerden sözel olarak öğrenildi.

**Bulgular:** Çalışmaya torakoamniyotik şant uygulanan 10 vaka dahil edildi. İşlem öncesi 9 (%90) vakaya primer plevral efüzyon, 1(%10) vakaya ise tip 1 konjenital kistik adenomatoid malformasyon ön tanısı kondu. 2 vakada (%20) şantın yerinden çıkması nedeni ile tekrar torakoamniyotik şant uygulaması yapıldı. İşlem sonrası fetal kayıp 1 vakada izlendi. Neonatal ve infant dönemde 3 vaka kaybedildi. İşlem sonrası takipte 4 vakada preterm eylem ve doğum, 2 vakada ise fetal hidrops gelişti. Konjenital kistik adenomatoid malformasyon saptanan olgunun postpartum 1. haftada opere edildiği ve şu anda ek sorunu olmadığı öğrenildi. Diğer olgularda yeni doğanlar döneminde ve sonraki izlemlerinde ek komplikasyon saptanmadı.

**Sonuç:** Fetal hidrotoraks varlığında torakoamniyotik şant uygulamasının perinatal sonuçlar üzerine olumlu etkisi olmaktadır. Bu nedenle aileye intrauterin fetal tedavi seçeneği olarak sunulmalıdır.

**Anahtar Kelimeler:** Fetal hidrotoraks, torakoamniyotik şant, perinatal sonuç.

Yazışma Adresi / Correspondence Address:

Cantekin İSKENDER

Adalet sitesi 2 kehribar sk 19-a/14 Büyükesat/ Ankara, Turkey

Phone: +90 533 450 52 30 E-mail: iskender@yahoo.com

Geliş Tarihi/Received : 20.07.2014

Kabul Tarihi/ Accepted :31.07.2014

## Giriş

İzole fetal hidrotoraks son derece nadir bir durumdur ve 1/10.000 ile 1/15.000 oranında görülmektedir(1). İzole fetal hidrotoraks nedenleri arasında, akciğerde yer kaplayan kitleler önemli oranda morbidite ve mortaliteye neden olmaktadır (2-3). Lezyonun boyutuna bağlı olarak mediastinal shift, fetal hidrops, pulmoner hipoplazi, özofağal basıya sekonder polihidramniyos ve preterm eylem gelişebilmektedir (4). Akciğerde yer kaplayan kitle etyolojisi içerisinde primer ve sekonder hidrotoraks ile konjenital kistik adenomatid malformasyon (KKAM) antenatal dönemde müdahale edilebilen lezyonlar olması nedeni ile önemlidir.

Fetal akciğerdeki kistik lezyonlara müdahale etmek amacı için torakosentez ilk olarak 1982 yılında önerilmiştir (5). Günümüzde torakosentez, fetal hidrotoraks tedavisinden ziyade tanısal bir işlem olarak kabul edilmekte ve sadece doğum öncesi neonatal resusitasyonu kolaylaştırması nedeni ile yapılması önerilmektedir (6). Seçilmiş, fetal hidrotoraks ve drenaj sonrası hızla tekrarlayan makro kistik KKAM vakalarına güncel yaklaşım, torakoamniyotik şant (TŞ) ile intrauterin kalıcı drenaj sağlanmasıdır (7). Yazımızda, 5 yıllık süreçte karşılaştığımız vakalara yapmış olduğumuz müdahaleler ile ilişkili klinik tecrübemiz, güncel literatür bilgileri ve vakalarımızın perinatal sonuçları sunulmuştur.

## Gereç ve Yöntemler

Hastanemiz perinatoloji kliniğinde Ocak 2008 ve Ağustos 2013 döneminde tanı alan ve tedavisi yapılan izole fetal hidrotoraks olgularının bilgilerine ulaşıldı. Hastaların tanı konulan gebelik haftası, sonografik tanı ve ayrırcı tanı için yapılan test sonuçları, TŞ işlemi komplikasyonları, antenatal takip bilgileri, doğum ve erken neonatal perinatal sonuç bilgilerine ulaşıldı. Çalışma yapılması için hastanemiz Etik Kurul'undan onay alındı.

### Torakoamniyotik şant prosedürü

TŞ uygulama işlemi ilk kez 1986 yılında bildirilmiştir (8). İşlem öncesi ultrasonografi ile uygun giriş bölgesi tespit edilmektedir. Bu alan fetal toraksa direkt olarak ulaşılabilir, amnion mayisinin bulunduğu ve plasentanın bulunmadığı bir yer olmalıdır. Sonrasında cilt antisepsi ve analjezi sağlanmakta ve bistüri yardımı ile 2-3 mm çaplı bir cilt kesisi yapılmaktadır. Bu işlem sonrasında, dış çapı 3 mm olan ana trokar (de Elles Instruments, Coulsdon, Surrey, UK) bu kesiden içeri sokulmaktadır. Fetal akciğerde uygun alana ulaşıldıktan sonra trokarın içerisinden uç kısımları helezon ve mikrodellikli olan silikondan yapılmış şant (dış çapı, 0.21 mm;

iç çapı, 0.15 mm) içeri sokulmaktadır (Cook Medical, Spencer, Indiana, USA). Şantın iç ucu fetal akciğerde, dış ucu ise amnionda olacak şekilde yerleştirilerek işleme son verilmektedir.

İşlem öncesi hastalara profilaktik antibiyotik uygulaması ile tokolitik amaçlı rektal indometazin verildi. 24 hafta üstü ve 34 hafta altı olan vakalarda fetal akciğer maturasyonunu hızlandırması amacı ile 12 mg betametazon uygulaması yapıldı.

## Bulgular

Çalışmaya 10 vaka dahil edildi. Sonuçlar Tablo 1'de sunuldu. TŞ uygulama haftası ortalama 24. Hafta ( en erken 20, en geç ise 32). İşlem öncesi 9 (%90) vakaya primer plevral efüzyon, 1(%10) vakaya ise makro kistik KKAM ön tanısı kondu. Lezyon 5 (%50) vakada sağda, 3 (%30) vakada solda, 2 (%20) vakada ise bilateral tespit edildi. Sadece 1 (%10) vakada tanı anında polihidramniyos tespit edildi. Vakaların hepsinin karyotipi normal bulundu ve ayrırcı tanı testlerinde ek anormallik tespit edilemedi.

Bilateral olan 2 vakaya iki farklı seansta her iki tarafa TŞ uygulaması yapıldı. Diğer 8 vakaya tek TŞ uygulaması yapıldı. 2 vakada (%20) şantın yerinden çıkması nedeni ile tekrar TŞ uygulaması yapıldı. 21. haftada TŞ uygulaması yapılan vakada işlem sonrası ilk 24 saatte intrauterin kayıp gerçekleşti ve 440 gram exitus fetüs doğurtuldu. Antenatal dönemde 3 vakada ek komplikasyon gelişmedi. 4 vakada preterm eylem ve doğum, 2 vakada ise fetal hidrops gelişti. Erken neonatal dönemde 2 (%22.2) vakada ölüm gerçekleşti. Mortalite gelişen olgulardan ilki, antenatal dönemde tek taraflı plevral efüzyonu olan, şant sonrası yerinden kayma nedeni ile ikinci kez şant takılan ve izlemde fetal hidrops gelişen vaka idi. Bu olguda gebeliğinin 31. haftasında fetal distres nedeni ile 2100 gram bebek doğurtuldu ve erken yenidoğan döneminde solunum ve kalp yetmezliği nedeni ile mortalite gelişti. İkinci vaka 30. haftada bilateral hidrotoraks ve polihidramniyosu saptanan vaka idi. İşlemden bir hafta sonra preterm eylem nedeni ile doğumu meydana geldi. 1250 gram doğan bebek postpartum 2. gününde solunum ve kalp yetmezliği nedeni ile kaybedildi. Makrokistik KKAM saptanan olgu postpartum 1. haftada opere edildi. Şu anda 2 yaşında ve ek bir sorunu yok. 23. haftada TŞ uygulanan, 2 hafta sonra şantın yerinden çıkması nedeni ile tekrar TŞ uygulanan ve gebeliği 28. haftada preterm doğum ile sonlanan vaka ise postpartum 178. Günde oldu. Ölüm nedeni olarak prematürite, solunum yetmezliği ve sepsis düşünüldü. Diğer olgularda yeni doğanlar döneminde ve sonraki izlemlerinde ek komplikasyon saptanmadı.

Tablo 1: TŞ uygulanan vakaların sonuçları

Vaka no	Tanı haftası	Ön tanı	Eşik eden anomali/durum	Şant komplikasyonu	Antenatal komplikasyon	Doğum haftası	Doğum ağırlığı(gram)	Neonatal ve infant dönemde ölüm
1.	20	Tek taraflı hidrotoraks(sol)	yok	Var (yerinden çıkma)	Hidrops Polihidroamnios	31	2100	Postpartum 1. gün
2.	21	Tek taraflı hidrotoraks(sağ)	yok	yok	Preterm eylem	34	2340	n
3.	23	Tek taraflı hidrotoraks(sol)	yok	Var (yerinde çıkma)	Preterm eylem	28	1100	Postpartum 178. gün
4.	24	KKAM tip 1(sağ)	yok	yok	Yok	38	3410	n
5.	21	Tek taraflı hidrotoraks(sol)	yok	yok	Fetal kayıp	21	440	Intrauterin fetal kayıp
6.	24	Tek taraflı hidrotoraks (sağ)	yok	yok	Hidrops Polihidroamnios	37	2740	n
7.	30	Bilateral hidrotoraks	Polihidroamnios	yok	Preterm doğum	32	1250	Postpartum 2. gün
8.	32	Tek taraflı hidrotoraks (sağ)	yok	yok	Yok	36	3100	n
9.	26	Tek taraflı hidrotoraks (sağ)	yok	yok	Yok	37	2950	n
10.	30	Bilateral hidrotoraks	yok	yok	Preterm eylem	34	2010	n

TŞ: Torakoamniyotik şant (TŞ), n:Normal, KKAM; konjenital kistik adenomatoid malformasyon,

## Tartışma

İzole fetal hidrotoraks 1/10.000 ile 1/15.000 oranında bildirilen nadir bir sorundur (1). Fetal hidrotoraks gelişiminde en olası fizyopatolojik mekanizmanın konjenital lenfatik obstrüksiyon olduğu düşünülmektedir (3,4,9). Lezyon sıklıkla tek taraflıdır ve varlığında klinik sonuçları tahmin etmek oldukça güçtür. Genelde ikinci trimesterde görülmektedir, nonhidropik ve şiddetli olmayan durumlarda sıklıkla kendiliğinden gerileyebilir (9). Ancak şiddetli vakalarda pulmoner hipoplazi, mediastinal şifte sekonder polihidramniyos ve hidropsa neden olabilir (3,4).

Antenatal dönemde hidrotoraks tanısı konulan vakalarda primer ve sekonder ayrımına gidilmelidir. Sekonder hidrotoraks sıklıkla non immün hidropsun bir parçası olarak karşımıza çıkmaktadır (10). Bu durumun altından ise sıklıkla kardiyak yapısal anomaliler ve aritmi çıkmaktadır (7). Ayrıca bu vakalarda %25 oranında sistemik malformasyon ve %7-12 oranında kromozomal anormallik ile karşılaşlabilmektedir (7,10). Bu nedenle antenatal dönemde fetal hidrotoraks saptanan hastalarda etyolojik nedenlerin ve fetal hidrops varlığının saptanması prognozun belirlenmesinde ve hastanın yönetiminde önemli rol oynamaktadır. Bunun için önerilen test ve incelemeleri tablo 2'de verilmiştir (11). Sunduğumuz seride vakaların 9'unda (%90) primer hidrotoraks, 1'inde (%10) ise makrokistik KKAM saptanmıştır.

Hidrotoraks olgularında kalıcı TŞ prosedürü ilk kez 1986 yılında Seeds ve Bowes tarafından tarif edilmiştir (8). TŞ işlemi uygulanan gebeliklerde neonatal sonuçlar üzerine olan olumlu etkisi daha önceki çalışmalarda bildirilmiştir (6-10). Ancak işlemin kendisine bağlı intrauterin fetal kayıp olasılığı farklı çalışmalarda %16-38 oranında bildirilmiştir (12-14). Sunduğumuz seride 1 (%10) olguda işlem sonrası intrauterin fetal ölüm olmuştur. Ek olarak preterm eylem, erken membran rüptürü, koryoamniotik seperasyon işleme bağlı bildirilen diğer olası komplikasyonlardır (13,14). Sunduğumuz seride 5 (%50) olguda preterm eylem nedeni ile doğum meydana gelmiştir.

Ön tanı sonrası, TŞ işleminin uygulanması için efüzyonun saptandığı gestasyonel hafta, efüzyonun hızlı ilerlemesi veya gerilemesi ve hidropsun eşlik edip etmemesi önemlidir. Efüzyonun fetal akciğerde %50'den az yer kaplaması, mediastinal şifte neden olmaması, haftalık takiplerde gerilemesi durumunda haftalık sonografik takibe devam edilmesi genel kabuldür (9,14). Ancak bu konuda farklı yaklaşımlar da vardır. Çünkü hidrops veya polihidramniyos gelişikten sonra TŞ yapılan vakalarda fetal ve neonatal kayıp oranı daha yüksek bildirilmiştir (4).

Sunduğumuz seride erken neonatal ölüm gerçekleşen iki olgu bulunmaktadır. Bu iki olguda da hidrotoraks 2. trimester başında gelişmişti. Otopsi sonucunda her iki olguda da ek anomali saptanmadı ve ölüm nedeni ilk olguda şiddetli pulmoner hipoplazi, ikinci olguda ise şiddetli pulmoner hipoplazi ve kalp yetmezliği idi. Bu olgulardan detaylı olarak yazının önceki bölümünde bahsedilmiştir. Kaybedilen ilk vakada tanı haftasının erken olması, işlemin başarısız olması ve preterm eylemin meydana gelmesi fetal kaybın olası nedenleridir ve bu durum önceki literatür verilerinde fetal kaybın nedenleri ile örtüşmektedir (12-14). İkinci vakada ise tanı zamanında polihidramniyosun gelişmiş olması, bilateral hidrotoraks olması, bu vakalarda şiddetli pulmoner hipoplazi ve mediastinal şiften bulgusu olarak kabul edilmektedir. Ek olarak preterm doğmuş olması bir diğer neden olabilir. Vakalar içerisinde term dönemde doğan vakalarda kayıp olmamıştır.

Hidrops gelişmiş vakalarda kateter uygulamasının klinik sonuçlar üzerine olumlu etkisi tartışmalıdır (13,14). Kliğimizde ileri derece hidrops gelişmiş vakalarda şant

uygulanması yapmamaktayız, sadece term veya terme yakın gebelik haftalarında doğum öncesi neonatal resusitasyonu kolaylaştırması amacı ile boşaltıcı torakosentez yapmaktayız.

**Tablo 2:** Fetal hidrotoraks varlığında önerilen test ve incelemeler

Maternal	Fetal
Tam kan sayımı	İleri düzey fetal anomali taraması
Kleihauer Betke testi	Fetal ekokardiyografi
Kan grubu ve Rh tayini	Karyotip tayini
Hemoglobin elektroforezi	Sitomegalovirüs, toksoplasma, parvo virus
TORCH/parvo virus/sifiliz taraması	

**TORCH:** Toksoplasma, Rubella, Cytomegalovirus, Herpes.

Primer hidrotoraks ile ilişkili en sık neden KKAM'dır. Hastalığın sıklığı 25 000 ila 35 000 canlı doğumda birdir (15). KKAM, terminal respiratuar bronşiollerdeki anormal büyümeye sekonder gelişen ve 1 mm'den 10 cm'ye kadar değişik çapta olabilen kistik kitlere neden olan bir durumdur (16). Sonografik olarak mikrokistik ve makrokistik olarak iki gruba ayrılır (17). Sadece makrokistik tipte antenatal dönemde cerrahi müdahale mümkündür. Literatürde hidrops gelişmeyen KKAM olgularında neonatal sonuç son derece iyi olarak bildirilmiştir (18). Kliğimizde makrokistik KKAM varlığında ilk olarak boşaltıcı torakosentez işlemi yapmaktayız. Takip ettiğimiz KKAM olgularından sadece birinde hidrotoraksın erken dönemde tekrarlama nedeni ile TŞ uygulaması yapıldı. Bu olguda postpartum ek morbidite ve mortalite olmamıştır.

TŞ uygulamasında en sık kullanılan şant çift kıvrımlı kataterdir (8). Biz de klinik olarak bu kateteri kullanmaktayız. Ancak farklı kateter uygulaması yapan kliniklerde vardır (12,13). Yeni bir kateter tipi olan double basket kateter uygulamasının daha az invaziv olduğu ve daha az yerinden çıktığı, ancak daha sık tıkandığı bildirilmiştir (19). Şu anda hangi kateterin daha uygun olduğunu araştıran randomize kontrollü çalışma bulunmamaktadır.

TŞ uygulanmış vakada en olası beklenen komplikasyon kateterin çalışmamasıdır (10). Bu durum şantın yerinden çıkması veya olası kanamaya sekonder gelişen trombüs ile tıkanmasıdır. Bu durumda işlemin tekrarlanması gerekmektedir. Sunduğumuz seride iki (%20) vakada şant tekrarlama yapılmıştır, bununda nedeni şantın yerinden çıkmasıdır.

TŞ uygulanan vakaların doğum zamanı ve şekli konusunda kesin bir fikir birliği yoktur. Ancak genel kabul 34-35. gestasyonel haftadan sonra doğum yapılabileceği şeklindedir (20). Ek olarak doğum sonrası gerekli müdahalenin yapılabileceği yeni doğan ekibi ve ekipmanın hazır olması gerekmektedir.

Günümüzde prenatal dönemde artan oranda tespit edilen fetal hidrotoraks vakalarının yeterli ayırıcı tanısı ve yönetimi son derece önemlidir. Tanı sonrası vakaların TŞ işleminin yapıldığı merkezlere yönlendirilmesi ve doğumun da yenidoğan yoğun bakım hizmeti verilen merkezde olmasının sağlanması gerekmektedir.

## Kaynaklar

- Longaker MT, Laberge JM, Dansereau J, Langer JC, Crombleholme TM, et al. Primary fetal hydrothorax: natural history and management. *J Pediatr Surg* 1989; 24: 573-576.
- Aubard Y, Derouineau I, Aubard V, Chalifour V, Preux PM: Primary fetal hydrothorax: a literature review and proposed antenatal clinical strategy. *Fetal Diagn Ther* 1998; 13: 325-333.

3. Castillo RA, Devoe LD, Falls G, Holzman GB, Hadi HA, Fadel HE: Pleural effusions and pulmonary hypoplasia. *Am J Obstet Gynecol* 1987; 157: 1252–1255.
4. Klam S, Bigras JL, Hudon L: Predicting outcome in primary fetal hydrothorax. *Fetal Diagn Ther* 2005; 20: 366–370.
5. Peters RE, Redwine FO & Cruikshank DP. Congenital bilateral chylothorax. Antepartum diagnosis and successful intrauterine surgical management. *JAMA* 1982; 248: 1360–1361.
6. Cardwell MS. Aspiration of fetal pleural effusions or ascites may improve neonatal resuscitation. *South Med J* 1996; 89: 177–178.
7. Klam S, Bigras JL & Hudon L. Predicting outcome in primary fetal hydrothorax. *Fetal Diagn Ther* 2005; 20: 366–370.
8. Rodeck CH, Fisk NM, Fraser DI et al. Long-term in utero drainage of fetal hydrothorax. *N Engl J Med* 1988; 319: 1135–1138.
9. Rustico MA, Lanna M, Coviello D, Smoleniec J, Nicolini U: Fetal pleural effusion. *Prenat Diagn* 2007; 27: 793–799.
10. Deurloo KL, Devlieger R, Lopriore E, et al. Isolated fetal hydrothorax with hydrops: a systematic review of prenatal treatment options. *Prenat Diagn* 2007;27:893–9.
11. Yinon Y, Kelly E, Ryan G. Fetal pleural effusions. *Best Pract Res Clin Obstet Gynaecol.* 2008;2277-96.
12. Rustico MA, Lanna M, Coviello D, et al. Fetal pleural effusion. *Prenat Diagn* 2007;27:793–9.
13. Smith RP, Illanes S, Denbow ML, Soothill PW. Outcome of fetal pleural effusions treated by thoracoamniotic shunting. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2005;26:63–6.
14. Picone O, Benachi A, Mandelbrot L, et al. Thoracoamniotic shunting for fetal pleural effusions with hydrops. *Am J Obstet Gynecol* 2004;191: 2047–50.
15. Laberge JM, Flageole H, Pugash D, Khalife S, Blair G, Filiatrault D, Russo P, Lees G, Wilson RD. Outcome of the prenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid lung malformation: a Canadian experience. *Fetal Diagn Ther* 2001; 16: 178–186.
16. Stocker JT, Madewell JE, Drake RM. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. Classification and morphologic spectrum. *Hum Pathol* 1977; 8: 155–171.
17. Adzick NS, Harrison MR, Glick PL, Golbus MS, Anderson RL, Mahony BS, Callen PW, Hirsch JH, Luthy DA, Filly RA, et al. Fetal cystic adenomatoid malformation: prenatal diagnosis and natural history. *J Pediatr Surg* 1985; 20: 483–488.
18. Schrey S, Kelly EN, Langer JC, Davies GA, Windrim R, Seaward PG, Ryan G. Fetal thoracoamniotic shunting for large macrocystic congenital cystic adenomatoid malformations of the lung. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2012 ;39:515-20.
19. Miyoshi T, Katsuragi S, Ikeda T, Horiuchi C, Kawasaki K, Kamiya CA, Sasaki Y, Osato K, Neki R, Yoshimatsu J. Retrospective review of thoracoamniotic shunting using a double-basket catheter for fetal chylothorax. *Fetal Diagn Ther.* 2013;34:19-25.
20. Gregory CL, Wright J, Schwarz J, Rakowski L. A review of fetal thoracoamniotic & vesicoamniotic shunt procedures. *J Obstet Gynecol Neonatal Nurs.* 2012 ;41:426-33.