

Tanısı Gecikmiş Bir Kronik Öksürük Vakası

A Case with Delayed Diagnosis of Chronic Cough

Erdem TOPAL,^a
Mustafa ARGAN,^a
Ayşe Tana ASLAN,^b
Mehmet Sadık DEMİRSOY,^a
İpek TÜRKTAŞ,^a
Arzu BAKIRTAŞ^a

^aPediyatrik Allerji ve Astım BD,
^bPediyatrik Göğüs Hastalıkları BD,
Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Ankara

Geliş Tarihi/Received: 07.05.2012
Kabul Tarihi/Accepted: 12.07.2012

Yazışma Adresi/Correspondence:
Erdem TOPAL
Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Pediyatrik Allerji ve Astım BD, Ankara,
TÜRKİYE/TURKEY
erdemtopal44@yahoo.com

ÖZET Çocuklarda sekiz haftayı geçen öksürük, kronik öksürük olarak tanımlanır. Etiyoloji, çocuğun yaşına göre farklılık gösterir. Bronkomalazi bebeklerde kronik öksürük nedenlerinden biri olmasına rağmen, tanısı nadiren okul çağına kadar gecikebilir. Olgumuza, 10 yaşında kız hasta, kliniğimize başvurmadan önce doktorlar tarafından tekrarlayan üst ve alt solunum yolu enfeksiyonu tanısı ve başvurudan iki hafta önce de bir doktor tarafından astım tanısı konulmuştu. Olgunun ilk değerlendirilmesinden sonra konjenital solunum yolu anomalileri açısından fleksibl bronkoskopi yapıldı. Fleksibl bronkoskopide, sağ alt ana bronş ve sol ana bronş başlangıcında spontan solunum sırasında etkilenen bronşta ekspiriyumda %50 dinamik kollaps görüldü. Bu olgu, kronik öksürüğe rağmen tanısı okul çağına kadar gecikebilen konjenital hava yolu malazileri açısından hekim farkındalığını artırmak amacıyla sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler: Bronkomalazi; çocuk; öksürük

ABSTRACT In children, cough lasting longer than eight weeks is defined chronic cough, the aetiology of which varies with the age of children. Although bronchomalacia is counted as one of the causes of chronic cough in infancy, its diagnosis rarely may be delayed until late childhood. Our case, 10 years-old-female patient was diagnosed with recurrent upper and lower respiratory tract infections by various doctors and diagnosed with asthma by a doctor two weeks prior to admission to our clinic. After first assessment of case, flexible bronchoscopy were done to evaluate congenital respiratory tract anomalies. In flexible bronchoscopic investigation, 50% dynamic collaps in the bronchial diameter during spontaneous respiration was visualized in the right main lower lobe bronchus and in the entry section of the left main stem bronchus. This case is presented to increase the awareness of physicians to respiratory tract malacia diagnosed in late childhood as the reason of chronic cough.

Key Words: Bronchomalacia; child; cough

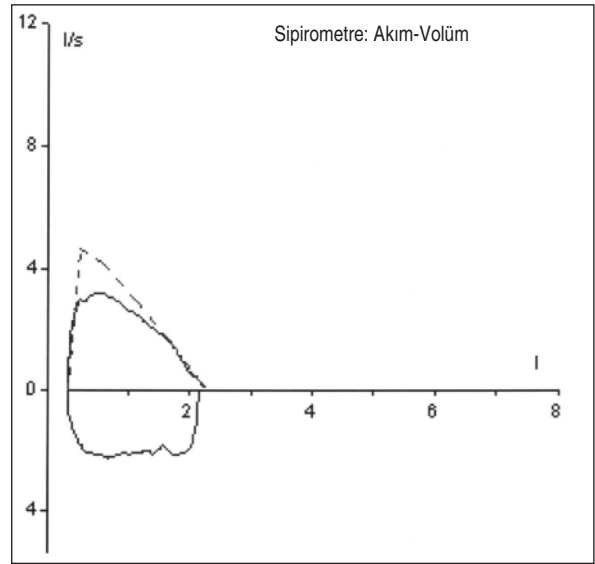
Türkiye Klinikleri J Pediatr 2012;21(3):201-4

Çocuklarda sekiz haftayı geçen öksürük, kronik öksürük olarak tanımlanır.¹ Etiyolojisi çocuğun yaşına göre farklılık gösterir.^{1,2} Bronkomalazi spesifik kronik öksürük nedenleri arasında yer almakta ve tekrarlayan hışıltı ataklarıyla da kendini gösterebilmektedir.³ Büyüme ile solunum yolu çapı arttığından iki yaş civarında kendiliğinden iyileşir.⁴ Ancak nadiren çocukluk dönemine kadar devam ederek geç tanı da alabilir.⁵ Tanıdaki bu gecikme konjenital solunum yolu malazilerinin yanlış tanı almasına ve uygun olmayan tedavilerin verilmesine neden olabilir. Bu olgu,

kronik öksürüğe rağmen tanısı okul çağına kadar gecikebilen konjenital hava yolu malazileri açısından hekim farkındalığını artırmak amacıyla sunulmuştur.

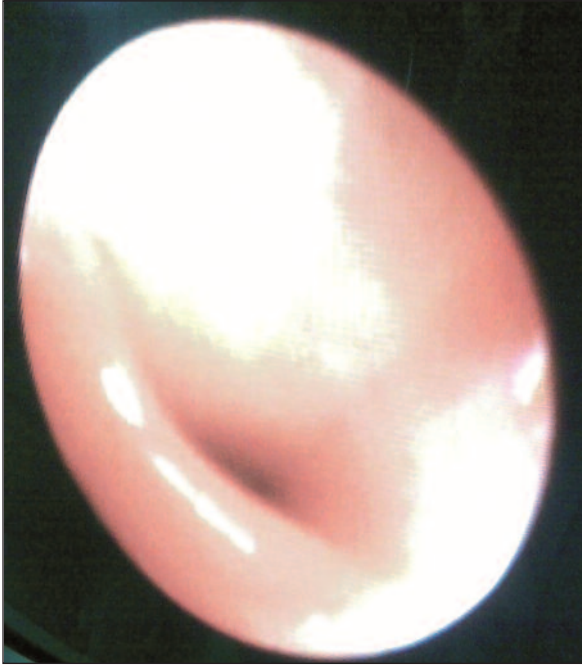
OLGU SUNUMU

On yaşında kız hasta, bebekliğinden beri arada hiç iyilik hali olmayan öksürük şikâyetiyle kliniğimize getirildi. Öksürüğünü, göğsünde hırıltı olmaksızın bazen balgamlı bazende kuru olarak tarifliyordu. Eforla çabuk yorulma ve gribal enfeksiyon dönemlerinde öksürüğünde artış oluyordu. Bu dönemlerde doktorlar tarafından üst ve alt solunum yolu enfeksiyonu tanılarıyla birçok kez antibiyotik tedavisi kullanmış ve kısa süreli fayda görmüştü. Kliniğimize başvurudan iki hafta önce bir doktor tarafından astım denilerek nebulize budesonid, oral montelukast ve nebulize salbutamol tedavisi başlanmış ancak hastanın şikâyetlerinde hiç düzelme olmamıştı. Öksürük şikâyetine ek olarak, son bir aydır hemen her yemek sonrası kusuyor ve ağzına acı-ekşi su geliyor, göğsünde yanma yokmuş. Bebeklik döneminde de çok kusmaları olurmuş. Ailesinde atopik hastalık öyküsü olmayan olgunun fizik incelemesinde, vücut ağırlığı 46 kg (90p), boy 143 cm (75p), solunum ve diğer sistem muayeneleri doğaldı. Kronik öksürük etiolojisine yönelik çekilen akciğer grafisi normaldi. Solunum fonksiyon testinde (SFT) zorlu vital kapasite (FVC): %100, birinci saniyedeki zorlu ekspiratuvar hacim (FEV₁): %103, FEV₁/FVC: 103, zorlu vital kapasitenin %25-75'i arasındaki ortalama akım hızı (FEF₂₅₋₇₅): %90, zirve ekspiratuvar akım hızı (PEF): %69 idi (Şekil 1). Kronik öksürük açısından dış merkezde uygulanan astım tedavisine yanıt alınmaması ve bebeklik döneminden bu yana reflü düşündürülen şikâyetleri olması nedeniyle olguya ampirik 30 mg/gün lansoprazol p.o. başlandı. İki hafta sonra mide şikâyetlerinde azalma olmasına rağmen öksürük şiddeti ve sıklığında değişiklik tariflemeyen olgunun, lansoprazol dozu çocuk gastroenterolojinin önerisiyle 60 mg/gün'e çıkarıldı. Bu dozu da iki hafta kullanan olgunun mide şikâyetlerinde düzelme görüldü, ancak öksürük şikâyetinde hiç iyileşme olmadı. Bu nedenle eşlik edebilecek olası astım açısından SFT tekrarlandı ve



ŞEKİL 1: Hastanın akım volüm eğrisi (Sipirometre).

inhaler salbutamol ile erken reverzibilite (FEV₁'de %3) bakıldı. Epidermal deri testleri konuldu. Soluk havasında nitrik oksit (eNO: 17,3 ppb) ölçüldü. Bu testlerin normal olması nedeniyle bronş provokasyon testi yapıldı. Metakolin ile bronş provokasyon testinde orta-ağır bronş hiperreaktivitesi (PC₂₀met: 0,27 mg/mL) saptanması üzerine olguya 5 gün oral metilprednizolon 1 mg/kg/gün, inhaler salbutamol ve flutikazon başlanılarak kontrole çağrıldı. Bir hafta sonraki kontrolünde sistemik steroid tedavisinden fayda görmeyen olguda astım tanısı dışlandı. Kronik öksürük etiolojisine yönelik yapılan tetkiklerinde; serumda immünoglobulin düzeyleri [IgG: 908 mg/dL (639-1349 mg/dL), IgA: 92,2 mg/dL (70-312 mg/dL), IgM: 209 mg/dL (56-352 mg/dL), IgE: 47,6 IU/mL (0-170 IU/mL)], ter testi (37 mmol/L), PPD (10 mm), baryumlu özefagogram, ekokardiyografi ve toraks bilgisayarlı tomografisi (BT) normaldi. Gastroözefageal reflü ilişkili sindirim sistemi şikâyetleri azalan hastanın endoskopisinde, özofageal biyopsi normal, mide biyopsisi antral gastritle uyumluydu. Ardından konjenital solunum yolu anomalileri açısından yapılan fleksibl bronkoskopisinde, sağ alt lob ana bronş ve sol ana bronş başlangıcında spontan solunum sırasında etkilenen bronşta ekspiriyumda %50 dinamik kollaps görüldü (Resim 1). *Mycobacterium tuberculosis* ve diğer etkenler açısından bakılan bronkoalveolar



RESİM 1: Hastanın bronkoskopik incelenmesinde görülen sağ alt lob ana bronştaki kollaps.

(Renkli hali için Bkz. <http://pediatri.turkiyeklinikleri.com/>)

lavaj (BAL) ve sol alt bronş ağzından alınan biyopsi normaldi. BAL sıvısında lipid yüklü makrofaj tespit edildi ve lansoprazol tedavisine 30 mg/gün dozunda devam edildi. Hasta ve ailesi gelişebilecek alt solunum yolu enfeksiyonları ve şikâyetlerin hayat boyu sürebileceği konusunda bilgilendirildi. Mukosilyer klirensi artırmak için fizyoterapi ve ataklarda inhale beta 2 agonistler yerine nebulize ipratropium bromür kullanımı önerildi.

TARTIŞMA

Bronkomalazi hava yolu açıklığını sürdürecektir yeterli düzeyde kartilaj yapısının olmamasıdır. Bronkomalazi primer (konjenital trakeal kartilaj yokluğu) veya sekonder (trakeoözofageal fistül,

vasküler halka, kardiomegali, mediastinal kitlelerle dışarıdan bası ve akciğer transplantasyonu sonrası vb.) nedenlere bağlı olabilir.⁶ Bronkomalazi sıklığına ait az sayıda çalışma bulunmaktadır.^{4,5,7,8} Boogaard ve ark., 1997-2004 yılları arasında kliniklerine başvuran ve fleksibl bronkoskopi uygulanan 512 olguluk serilerinde, solunum yolu malazi sıklığını her 2,100 doğumda bir olduğunu belirtmişlerdir.⁵ Bu olguların, %46'sının trakeomalazi, %36'sının trakeobronkomalazi, %18'inin bronkomalazi olduğunu rapor etmişlerdir. Bronkomalazi en sık bir yaş altı bebeklerde görülür. Genelde temel bulgusu santral solunum yolları üzerinde düşük perdeli monofonik hışıltıdır. Lezyon sadece bir ana bronшта olduğunda, hışıltı o tarafta daha yüksek duyulabilir.⁶ Malazi ağır ve büyük hava yollarına lokalizeyse yenidoğan döneminde ciddi solunum yolu obstrüksiyonu ve siyanozla bulgu verir ve bu olgularda invaziv veya noninvaziv devamlı pozitif hava yolu basıncı (CPAP) uygulamasına ihtiyaç duyulabilir. Ancak malazi hafifse genellikle yenidoğan döneminden sonra öksürük, hışıltı, "rattle", stridor, tekrarlayan alt solunum yolu enfeksiyonu ve obstrüksiyonu, egzersiz intoleransı gibi non-spesifik bulgularla kendini gösterir.⁵ Bizim olgumuzda ise tekrarlayan alt solunum yolu enfeksiyonu ve kronik öksürük şikâyeti mevcuttu.

Primer bronkomalazi tanı yaşı yapılan çalışmalara göre farklılık göstermektedir (Tablo 1). Carden ve ark. çocuk ve erişkinlerde trakeomalazi ve trakeobronkomalazi üzerine derlemesinde tanı yaşının, semptomların başlangıcından itibaren 2,7 yıldan daha geç olmadığını bildirmişlerdir.⁴ Boogaard ve ark. ise çalışmalarında ortalama primer solunum yolu malazi tanı yaşını 5,2 yıl olarak tespit etmişlerdir.⁵ Bu çalışmada, 16 yaşına kadar kesin tanı almayan olgular saptanması nedeniyle, primer

TABLO 1: Solunum yolu malazilerinin tanı yaşları.

Çalışma	Hasta sayısı	Ortalama tanı yaşı (yıl)	En küçük tanı yaşı	En büyük tanı yaşı (yıl)
Boogard ve ark. ⁵	136	4,3	1 aylık	17
Xia Y ve ark. ¹²	53	1,8	1 aylık	8
Delgado ve ark. ¹³	19	2	Yenidoğan	12
Masters ve ark. ¹⁴	116	2,1	3 aylık	17,3
Castillo ve ark. ¹⁵	24	1	9 günlük	9

solunum yolu malazi tanısının geç konulabildiği bildirilmiştir. Olgumuzda da benzer şekilde bronkomalazi tanısı 10 yaşında konulmuştur.

Pektaş ve ark., kliniklerine kronik öksürük şikâyetiyle başvuran ve tetkikleri normal olan 23 olguya bronkoskopi yapmışlardı. Olguların 2 (%8,6)'sinin solunum yollarında malazi, 2 (%10)'sinin ise solunum yollarında konjenital anomali tespit ettiler. Solunum yolu malazisi olan olgulardan en küçüğü bir yaşında, en büyüğü ise 7 yaşındaydı. Solunum yolu anomalisi olan olguların her ikisi ise 7 yaşındaydı. Olgumuza benzer şekilde hastaların tanı alma yaşı okul çağına kadar gecikmişti.⁹

Primer solunum yolu malazili olgularda en sık şikâyet öksürüktür (%83) ve üçte ikisinde balgamlı olarak rapor edilmiştir.⁵ Bu olgularda öksürük tipik havlar tarzda (%43), gece (%42) veya egzersizle tetiklenen (%35) şekilde tanımlanmıştır.⁵ Bizim olgumuzda da öksürük ana şikâyet olup, zaman zaman balgamlıydı. Hastamız ayrıca egzersizle çabuk yorulma tarifliyordu ki bu da malazik olguların en az üçte birinde görülmektedir.⁵ Bronkomalazili olgularda, olgumuza benzer şekilde solunum fonksiyonlarında FVC, FEV₁, FEV₁/FVC normal, PEF'de düşüklük tespit edilmektedir, bronkodilatör yanıtı izlenmemektedir.⁵

Literatürde de bronkoskopiyle kesin solunum yolu malazi tanısı alan olguların semptom benzer-

liği nedeniyle %73'ünün astım, %63'ünün tekrarlayan alt solunum yolu enfeksiyonu ve %26'sının reflü benzeri şikâyetleri nedeniyle tedavi edilme öyküsü bulunduğu bildirilmektedir.⁵ Olgumuz da, 10 yaşına kadar defalarca alt solunum yolu enfeksiyonu tanısıyla tedavi görmüştü ve başvurudan 2 hafta öncede başka bir merkezde astım tanısı konulmuştu. Gerçekten de, izole bronkomalazili olgular, klinik benzerlik ve tedaviye yanıtızlık nedeniyle sıklıkla ağır persistan veya tedaviye dirençli astım tanısı alırlar.^{10,11} Bu nedenle tanıdaki gecikme olgumuzda da olduğu gibi gereksiz yere yüksek doz inhaler tedavi almalarına neden olabilir. Bu yüzden şüphelenilen hastalarda fleksibl bronkoskopi geciktirilmemelidir. Bu hastalarda asıl tedavi gelişebilecek alt solunum yolu enfeksiyonlarının tedavisi ve mukosilyer klirensi artırılmasıdır. Astım tanısı yoksa inhale beta 2 agonistlerden kaçınılmalıdır. Ayrıca nebulize ipratropium kullanımı hastalarda yarar sağlayabilir.⁶

Sonuç olarak, bu olgu okul çağı döneminde nadir bir kronik öksürük nedeni olan solunum yolu malazileri açısından pediatristlerin farkındalığını artırmak için sunuldu. Kronik öksürük ile başvurup, fizik muayenesi normal olan ve ampirik tedaviye (astım tedavisi gibi) yanıt vermeyen hastalar zaman kaybedilmeden pediatrik göğüs hastalıkları uzmanına gönderilmelidir.

KAYNAKLAR

- Shields MD, Bush A, Everard ML, McKenzie S, Primhak R; British Thoracic Society Cough Guideline Group. BTS guidelines: Recommendations for the assessment and management of cough in children. *Thorax* 2008;63(Suppl 3):iii1-iii15.
- Goldsohel AB, Chipps BE. Cough in the pediatric population. *J Pediatr* 2010;156(3):352-8.
- Chang AB, Glomb WB. Guidelines for evaluating chronic cough in pediatrics: ACCP evidence-based clinical practice guidelines. *Chest* 2006; 129(1 Suppl):260S-283S.
- Carden KA, Boiselle PM, Waltz DA, Ernst A. Tracheomalacia and tracheobronchomalacia in children and adults: an in-depth review. *Chest* 2005;127(3):984-1005.
- Boogaard R, Huijsmans SH, Pijnenburg MW, Tiddens HA, de Jongste JC, Merkus PJ. Tracheomalacia and bronchomalacia in children: incidence and patient characteristics. *Chest* 2005;128(5):3391-7.
- Finder JD. Bronchomalacia and tracheomalacia. In: Kliegman RM, Behrman RE, Jenson HB, Stanton BF, eds. *Nelson Textbook of Pediatrics*. 18th ed. Philadelphia, PA: Saunders, Elsevier; 2008. p. 1771-2.
- Masters IB, Chang AB, Patterson L, Wainwright C, Buntain H, Dean BW, et al. Series of laryngomalacia, tracheomalacia, and bronchomalacia disorders and their associations with other conditions in children. *Pediatr Pulmonol* 2002; 34(3):189-95.
- Jacobs IN, Wetmore RF, Tom LW, Handler SD, Potsic WP. Tracheobronchomalacia in children. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1994;120(2): 154-8.
- Pekcan S, Köse M, Kiper N, Aslan AT, Çobanoğlu N, Aydemir Ö, et al. [The flexible bronchoscopy findings of children who have chronic cough]. *Medical Journal of Selçuk* 2008;24(4):183-9.
- Cohn JR. Localized bronchomalacia presenting as worsening asthma. *Ann Allergy* 1985;54(3):222-3.
- Lavins BJ, Hamilos DL. Distal airway bronchomalacia resulting in severe obstructive airway physiology. *Chest* 1990;97(2):489-91.
- Xia Y, Huang Y, Li QB, Luo ZX, Liu EM, Chen KH, et al. [Analysis of 53 cases with bronchoscopically confirmed pediatric tracheobronchomalacia]. *Zhonghua Er Ke Za Zhi* 2007; 45(2):96-9.
- Delgado MD, Matute JA, Jiménez MA, Aguado P, Benavent MI, Filler RM, et al. [The treatment of the tracheobronchomalacia in pediatric age]. *Cir Pediatr* 1997;10(2):65-9.
- Masters IB, Zimmerman PV, Pandeya N, Petsky HL, Wilson SB, Chang AB. Quantified tracheobronchomalacia disorders and their clinical profiles in children. *Chest* 2008;133(2):461-7.
- Castillo A, Smith J, Figueroa V, Bertrand P, Sánchez I. [Tracheobronchomalacia in pediatric patients: clinical experience]. *Rev Med Chil* 2002; 130(9):1014-20.