

Tekrarlayan Nekrotizan Enterokolite Sekonder İntestinal Striktür Geliştiren İkiz Prematüre Bebekler

Intestinal Stricture Due to Recurrent Necrotizing Enterocolitis in Two Preterm Twin Infants: Case Report

Şebnem ÇALKAVUR,^a
Özgür OLUKMAN,^b
Fatma KAYA KILIÇ,^b
Mustafa KARTAL,^b
Başak UÇAN,^c
Oğuz Alp ARSLAN,^c
Filiz GÖKASLAN,^b
Füsün ATLIHAN^b

^aNeonatoloji Kliniği,

^bÇocuk Sağlığı ve Hastalıkları Kliniği,

^cÇocuk Cerrahisi Kliniği,

Dr. Behçet Uz Çocuk Hastalıkları ve
Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
İzmir

Geliş Tarihi/Received: 23.05.2011

Kabul Tarihi/Accepted: 06.09.2011

*Bu olgu sunumu, 19. Ulusal Neonatoloji
Kongresi (17-20 Nisan 2011, Muğla)'nda
poster bildirisi olarak sunulmuştur.*

Yazışma Adresi/Correspondence:

Fatma KAYA KILIÇ

Dr. Behçet Uz Çocuk Hastalıkları ve
Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Kliniği, İzmir,
TÜRKİYE/TURKEY
fatmakayakilic@hotmail.com

ÖZET İntestinal striktür, nekrotizan enterokolitin (NEK) en sık geç komplikasyonlarından. Cerrahi ve medikal tedavi sonrası %25-35 oranında gelişebilir. Perfore olmayan bağırsak bölgesinde skar gelişimiyle oluşan striktür, bazen 6 ay gibi bir sürede dahi semptom vermeyebilir. Sıklıkla beslenme problemleri, diyare ve bağırsak obstrüksiyonu bulguları gözlenir. Burada tekrarlayan NEK ataklarına sekonder intestinal striktür gelişen, cerrahi tedaviyle tam düzelme gösteren ikiz preterm olgular sunulmuştur. Olgular dış merkezde izlemeleri sırasında NEK ve sepsis atakları geçirmiş, beslenme intoleransı ve batın distansiyonu gelişimiyle hastanemize sevkleri ardından, 22. ve 43. günlerde baryumlu kolon grafisi sonucu distal kolonda ve ileoçekal valv proksimalinde striktür saptanarak opere edilip, şifa ile taburcu edilmişlerdir. Primer NEK tanısından sonra striktür gelişim süresinin uzunluğu nedeniyle, taburculuk sonrasında gelişen semptomları olan bebeklerde tanı gecikebilir. Bu nedenle beslenme intoleransı ve parsiyel obstrüksiyon bulgusu olan preterm bebeklerde, özellikle hastanede yatış sırasında geçirilmiş NEK ve sepsis atakları varlığı sorgulanmalıdır. İntestinal striktür açısından tanısal işlemler hızla tamamlanarak, erken cerrahi girişimler uygulanmalıdır.

Anahtar Kelimeler: Enterokolit, nekrotizan; bebek, prematür; daralma

ABSTRACT Intestinal stricture is one of the late complications of necrotizing enterocolitis (NEC). Its reported incidence in the literature varies from 25% to 35% for medically and surgically managed patients. It occurs as a scar formation on an unperforated intestinal segment and it may remain asymptomatic even 6 months after the diagnosis of NEC. Infants often present with feeding intolerance, diarrhea and evidence of partial bowel obstruction. Here we present preterm twin infants who developed intestinal stricture secondary to recurrent NEC and recovered completely after surgical treatment. These two patients had developed NEC and sepsis during their follow-up at another hospital, had been referred to our hospital after experiencing feeding intolerance and abdominal distension. They had been operated after diagnosing distal colonic and proximal ileocecal stricture via barium contrast studies and had been discharged with full recovery. Development of intestinal stricture may take quite a long time after the primary diagnosis of NEC. Therefore symptoms may become evident during postdischarge period and definite diagnosis may be left out of account. In this respect, preterm infants presenting with feeding intolerance and other symptoms related to partial bowel obstruction should be evaluated thoroughly and interrogated for NEC and sepsis attacks during their hospitalization. Diagnostic procedures should be started immediately and early surgical approach should be adopted.

Key Words: Enterocolitis, necrotizing; infant, premature; constriction

Türkiye Klinikleri J Pediatr 2012;21(4):243-6

Nekrotizan enterokolit (NEK) yenidoğanın en sık rastlanan acillerinden. NEK nedeniyle medikal ya da cerrahi tedavi verilen hastalarda, tedaviye rağmen intestinal striktür gelişimi geç komplikasyonlar arasındadır. NEK sonrası striktür gelişim oranı %10 ile %35 ara-

sında bildirilmektedir. Perfore olmayan bağırsak bölgesinde skar gelişimi nedeniyle oluşan striktür çoğunlukla akut dönemde semptomatik olmasına rağmen, bazen 6 ay gibi uzun bir sürede dahi semptom vermeyebilir. Etkilenen hastalarda sıklıkla beslenme problemleri, diyare ve bağırsak obstrüksiyonu bulguları gözlenir.¹ Burada tekrarlayan erken evre NEK ataklarına sekonder intestinal striktür gelişen ve cerrahi tedavi ile tam düzelme gösteren ikiz preterm olgular bilgilendirilmiş aile onamları alındıktan sonra sunulmuştur.

OLGU SUNUMLARI

OLGU 1

Otuz bir yaşındaki sağlıklı annenin ilk gebeliğinden, sezaryen ile, 33. gestasyon haftasında, ikiz eşi olarak, 1330 g ağırlığında doğan ve dış merkezde izlenen erkek bebek postnatal 22 günlük iken ünitemize yatırıldı. Öyküsünden doğumundan hemen sonra bir yenidoğan ünitesinde izlendiği, burada yaşamının 2. gününde anne sütüyle beslenmeye başladığı, takibinde 2 kez sepsis ve NEK atağı geçirdiği, her 2 atak sırasında da uygun medikal tedaviyi aldığı, ancak izleminde batın distansiyonu, kusması, beslenme intoleransı ve gaitada gizli kan pozitifliğinin devam etmesi üzerine hastanemize sevk edildiği öğrenildi. Geliş muayenesinde belirgin batın distansiyonu dışında patolojik bulgusu olmayan hastanın gaitada gizli kan testi pozitif. Çekilen direkt karın grafisinde multipl hava-sıvı seviyeleri olan ve bağırsak ansları ödemli gözlenen (Resim 1) olguya evre 1 NEK tanısıyla medikal tedavi başlandı ve enteral beslenmesi kesildi. Batın ultrasonografisinde (US) özellik olmayan, ancak izleminde beslenme sonrası rezidüleri gözlenen, batın distansiyonunda artış olan ve spontan gaita çıkışı seyrekleşen olguda intestinal striktür şüphesiyle baryumlu kolon grafisi çekildi. Distal kolonda 3 cm'lik segmentte striktür görülen (Resim 2) olgu opere edildi. Striktür bölgesinin rezeksiyonu yapılan olgu postoperatif 5. gününde beslenmeye başladı ve tam şifayla taburcu edildi.

OLGU 2

İlk olgunun ikiz eşi olarak, 1500 g ağırlığında doğan ve yine dış merkezde izlenen erkek bebek, postna-



RESİM 1: Ayakta direkt karın grafisinde multipl hava-sıvı seviyeleri ve ödemli bağırsak ansları görülmektedir.



RESİM 2: Baryumlu kolon grafisinde; distal kolonda 3 cm'lik segmentte striktür görülmektedir.

tal 43 günlük iken ünitemize yatırıldı. Öyküsünden doğumundan hemen sonra bir yenidoğan ün-

tesinde izlendiği, burada toplam 3 kez sepsis ve NEK atağı geçirdiği, tüm ataklar sırasında uygun medikal tedaviyi aldığı, ancak izleminde batın distansiyonu, kusması ve beslenme intoleransı gelişmesi üzerine hastanemize sevk edildiği öğrenildi. Geliş muayenesinde belirgin batın distansiyonu dışında patolojik bulgusu yoktu. Gaita çıkışı bulaş şeklinde olan hastanın oral beslenmesi kesildi. Ayakta direkt karın grafisinde dar tabanlı multipl hava-sıvı seviyeleri mevcut olup, pelviste gaz gölgesi yoktu (Resim 3). Batın US'de batın içi minimal serbest sıvı dışında özellik görülmeyen olgunun kolon pasaj grafisi kolonik striktürle uyumlu (Resim 4) bulununca opere edildi. Sigmoid kolonda yaklaşık 5 cm uzunluğunda bir segmentte striktür, striktür proksimalinde kolon ve ince bağırsak anslarında ağır dilatasyon, ilieçekal valvin proksimalinde ileum antimezenter yüzünde 8 cm uzunlukta eski inflamasyonlara bağlı yapışıklıklar görüldü. Striktür bölgesinin rezeksiyonu yapılarak yapışıklıklar temizlendi. Olası Hirschsprung hastalığını ekarte etmek için gönderilen biyopsi örneklerinde ganglion hücreleri varlığı saptandı.



RESİM 3: Ayakta direkt karın grafisinde; pelviste gaz gölgesinin görülemediği dar tabanlı multipl hava-sıvı seviyeleri görülmektedir.



RESİM 4: Kolon pasaj grafisinde; kolonik striktürle uyumlu görüntü izlenmektedir.

Postoperatif 4. gününde beslenmeye başlanan olgu tam şifayla taburcu edildi.

TARTIŞMA

NEK preterm bebeklerde en sık görülen gastrointestinal acildir. Primer olarak prematüre bebeklerin hastalığı olarak tanımlanır ve etkilenen bebeklerin %90'ından fazlası 36 hafta ve üzeri bebeklerdir.¹ Etkili medikal tedavilerle günümüzde yaşam oranları arttığı için NEK'e sekonder geç komplikasyonların görülme sıklığı da artmıştır.¹ Prospektif ve retrospektif çalışmalarda medikal ya da cerrahi olarak tedavi edilen NEK olgularında, NEK sonrası striktür gelişim oranı %10 ile %35 arasında bildirilmektedir.¹⁻³ Proksimal diverting enterostomi ile tedavi edilen şiddetli NEK olgularının alındığı bir seride bu oran %55'lere dek yüksek oranlarda verilmiştir.⁴ Hem primer anastomoz hem de enterostomi formasyonu uygulanan hastalarda bu oran %10-35 arasında bildirilirken, peritoneal drenajı takiben de benzer oranlarda striktür gelişimi bildirilmiştir.^{2,5} NEK sonrası striktürlerin çoğunluğu kolonda, büyük sıklıkla da sol kolonda gözlenir. Yen ve ark.nın 11 yıllık 80 yenidoğandan elde edilen verilerinde de %43 hastaya cerrahi gerektiği ve yaşayan 61 hastanın %20'sinde intestinal striktür geliştiği bildirilmiştir. Bu striktürlerin %50'si

kolonda, %30'u ileum ve kolonda, %16'sı da ileumda saptanmıştır.⁶ On yedi yıllık bir seride, intestinal striktür saptanan 25 hastanın %84'ünde yerleşim yeri kolon iken, %16'sında ileum ve %50'sinde de multipl yerleşimli olduğu ve NEK bulgularının düzelmesi sonrası ortalama 49. günde striktür gelişiminin saptanabildiği belirtilmiştir.⁴ Striktür gelişen birçok bebekte parsiyel bağırsak obstrüksiyonu kanıtları ve beslenme intoleransı bulguları mevcuttur.

Bizim hastalarımızda striktür gelişimi distal kolonda ve ileoçekal valv proksimalinde gözlenmiş olup, hastaların birinde 22, diğerinde 43. günde tanı konulmuştur. Bu süre zarfında her iki hastada da kısmi obstrüksiyon bulguları ve beslenme intoleransı bulguları mevcut olup, her iki hasta da gönderildikleri merkezde şüpheli NEK olarak değerlendirilerek medikal tedavi almışlardır.

Nadir yayında medikal olarak tedavi edilen NEK olgularında, beslenmeye geçmeden önce rutin kontrast çalışmalar yapılmasından bahsedilse de, bu rutin bir uygulama olarak önerilmez. Çünkü çoğu yazar bunun insidansının düşük olduğu düşüncesindedir. Yalancı negatiflik potansiyeli ve asemptomatik hastaya orta derecede invaziv bir prosedür

uygulanması, rutin görüntülemeyi uygunsuz kılar. NEK nedeni ile tedavi almış 156 aşırı düşük doğum ağırlıklı (ELBW) bebeğin alındığı bir kohort çalışmada, laparotomi ya da perkutan peritoneal drenaj ile tedavi edilenler arasında striktür oranları, yara açılması ve abdominal abse oluşumu açısından anlamlı bir farklılık saptanmamıştır.⁸ Striktürlerin uzun dönem sonuçları hakkında sınırlı veri vardır. Eğer hastalar striktür nedeni ile opere edilirse, beslenme gecikmekte ve hastanede yatış süresi de uzamaktadır. Ancak çoğu striktür ostomi tamiri sırasında gösterilir ve beslenme gecikmesine ve hastanede yatışa etki etmez. NEK sonrası tedavinin medikal ya da farklı cerrahi yöntemlerle yapılması striktür gelişim oranlarını değiştirmemektedir.

Striktür gelişim süresinin uzunluğu nedeniyle hastaneden taburcu olduktan sonra oluşan semptomlar gözden kaçabileceğinden, beslenme intoleransı ve parsiyel obstrüksiyon bulgusu olan preterm bebeklerde, yatış dönemine ait sorgulama ayrıntılı yapılmalıdır. Özellikle de geçirilmiş tekrarlayan NEK ve sepsis atakları sonrasında abdominal distansiyon gelişen ve beslenme sonrası inatçı kusmaları olan olgularda intestinal striktür akla gelmeli, uygun tanısal işlemler hızla tamamlanarak, erken cerrahi girişimler uygulanmalıdır.

KAYNAKLAR

1. Henry MCW, Moss RL. Neonatal necrotizing enterocolitis. *Seminars in Pediatric Surgery* 2008;17(2):98-109.
2. Lemelle JL, Schmitt M, de Miscal G, Vert P, Hascoet JM. Neonatal necrotizing enterocolitis: a retrospective and multicentric review of 331 cases. *Acta Paediatr Suppl* 1994;396:70-3.
3. Bütter A, Flageole H, Laberge JM. The changing face of surgical indications for necrotizing enterocolitis. *J Pediatr Surg* 2002;37(3):496-9.
4. Schimpl G, Höllwarth ME, Fotter R, Becker H. Late intestinal strictures following successful treatment of necrotizing enterocolitis. *Acta Paediatr Suppl* 1994;396:80-3.
5. Horwitz JR, Lally KP, Cheu HW, Vazquez WD, Grosfeld JL, Ziegler MM. Complications after surgical intervention for necrotizing enterocolitis: a multicenter review. *J Pediatr Surg* 1995;30(7):994-8; discussion 998-9.
6. Yeh TC, Chang JH, Kao HA, Hsu CH, Hung HY, Peng CC. Necrotizing enterocolitis in infants: clinical outcome and influence on growth and neurodevelopment. *J Formos Med Assoc* 2004;103(10):761-6.
7. Radhakrishnan J, Blechman G, Shrader C, Patel MK, Mangurten HH, McFadden JC. Colonic strictures following successful medical management of necrotizing enterocolitis: a prospective study evaluating early gastrointestinal contrast studies. *J Pediatr Surg* 1991;26(9):1043-6.
8. Blakely ML, Lally KP, McDonald S, Brown RL, Barnhart DC, Ricketts RR, et al.; NEC Subcommittee of the NICHD Neonatal Research Network. Postoperative outcomes of extremely low birth-weight infants with necrotizing enterocolitis or isolated intestinal perforation: a prospective cohort study by the NICHD Neonatal Research Network. *Ann Surg* 2005;241(6):984-9; discussion 989-94.