

Servikal Bronkojenik Kist; Çocuklarda Persistan Pnömoninin Nadir Bir Nedeni

Cervical Bronchogenic Cyst; A Rare Cause of Persistent Pneumonia: Case Report

Dr. Şit UÇAR,^a
Dr. Pelin ZORLU,^a
Dr. Mehmet Şah İPEK,^a
Dr. Atilla ÇİFCİ,^a
Dr. İbrahim ÖTGÜN^b

^aPediatric Kliniği,
Dr. Sami Ulus Kadın Doğum,
Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları
Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
^bÇocuk Cerrahisi AD,
Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi,
ANKARA

Geliş Tarihi/Received: 14.05.2007
Kabul Tarihi/Accepted: 03.09.2007

Antalya, 2006, Türk Pediatri Kongre-
si'nde poster olarak sunulmuştur.

Yazışma Adresi/Correspondence:
Dr. Şit UÇAR,
Dr. Sami Ulus Kadın Doğum,
Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları
Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
Pediatric Kliniği, ANKARA
situcar@gmail.com

ÖZET Bronkojenik kistler, embriyonik periyotta trakeobronşial ağacın aberran gelişimi ile oluşan, nadir görülen, iyi huylu, konjenital lezyonlardır. Genellikle mediastende ve intrapulmoner bölgede yerleşirler. Boyunun konjenital kistlerinin çoğunu tiroglossal, bronşial yarık ve timik kistler oluşturur. Bronkojenik kistler, boyunda nadir yerleşen gelişimsel anomalilerdir ve çocuklukta yaygın olarak solunum sıkıntısına neden olabilirler. Bu yazıda erken bebeklik döneminde iyileşmeyen pnömoni ile presente olan bir servikal bronkojenik kist olgusu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler: Bronkojenik kist; pnömoni

ABSTRACT Bronchogenic cysts are rare, benign, congenital lesions that occur as a result of aberrant development of the tracheobronchial tree in the embryonic period. They are usually located in the mediastinum and intrapulmonary regions. Most of congenital cysts of the neck are thyroglossal, bronchial cleft and thymic cysts. Bronchogenic cysts are developmental anomalies rarely occur in the neck and they may cause serious respiratory distress in childhood. A case with cervical bronchogenic cyst and persistent pneumonia, defined in early infancy, was presented in this paper.

Key Words: Bronchogenic cyst; pneumonia

Türkiye Klinikleri J Pediatr 2008;17(4):304-8

Trakeobronşial ağacın embriyolojik dönemde anormal gelişimi ile oluşan bronkojenik kistler, çoğunlukla mediastende ve akciğer parankiminde yerleşirler ve primer mediastinal kitlelerin %6-15'ini oluştururlar.¹⁻³ Boyun bölgesinde ise tiroglossal, bronşial yarık ve timik kistler yaygın olarak görülürken bronkojenik kistler oldukça nadirdir.⁴ Bu sunu raporunda, nadir görülen servikal bronkojenik kist olgusu, klinik ve radyolojik özellikleriyle tartışıldı.

OLGU SUNUMU

Dört aylık erkek hasta 3 aydır olan öksürük, doğumundan itibaren olan hırıltılı solunum, beslenme güçlüğü, kilo alamama, son 3 gündür morarma ve öksürüğü takiben kusma şikayetleri ile getirildi. Öyküsünden prenatal dönemde problem olmadığı, eşi ile arasında akrabalık bulunmayan 22 yaşındaki annenin ilk gebeliğinden normal yol ile 3300 g olarak hastanede doğduğu, doğar doğmaz ağladığı, morarmasının olmadığı, anne sütü ve for-

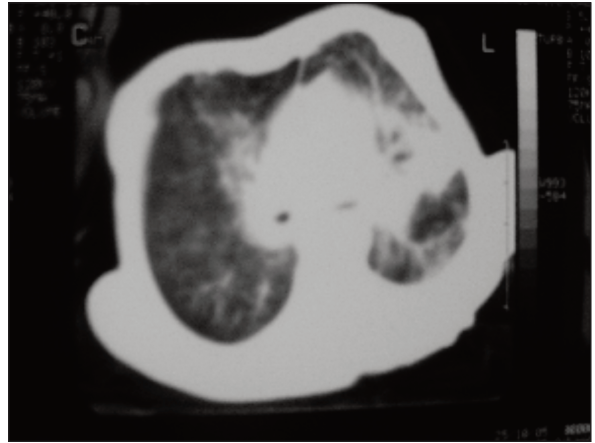
müla mama ile beslendiği, hasta ile 15 gün süreli teması olan babasının 3 ay önce tüberküloz tedavisi gördüğü ve amcasında da tüberküloz öyküsü olduğu öğrenildi. Muayenesinde huzursuz, malnütre görünümde olduğu, başını geriye attığı, vücut sıcaklığı 36.4°C, solunum sayısı 64/dk., nabızı 138/dk., tansiyonu 85/55 mmHg, vücut ağırlığı 3100 g (<5p), boy 50 cm (5p), baş çevresi 35 cm (<5p) olduğu, pektus ekskavatumunun mevcut olduğu, her iki hemitoraksın solunuma eşit katıldığı, interkostal, subkostal-suprasternal retraksiyonların ve inspiratuar stridorun olduğu ve akciğerlerde dinlemekle yaygın bilateral krepitan rallerinin olduğu tespit edildi. Diğer sistem muayene bulguları doğal idi.

Laboratuvar tetkiklerinden arteriyel kan gazlarında: pH 7.43, HCO₃ 28 mEq/L, pO₂ 55 mmHg, pCO₂ 43 mmHg; hemogramında: hemoglobin 15 g/dL, beyaz küre sayısı 15 600 /mm³, trombosit sayısı 259 000 /mm³; periferik yaymasında %66 nötrofil, %4 çomak, %30 lenfosit, trombositler bol kümeli; biyokimyasal testlerinde karaciğer ve böbrek fonksiyonları, glukoz, kalsiyum ve elektrolitleri normal bulundu. Beyin omurilik sıvısı incelemesi ve tam idrar tetkikinde patoloji bulgu yoktu.

Radyolojik incelemelerinden iki yönlü akciğer grafisinde, bilateral perihiler peribronşiyal kalınlaşma; toraks tomografisinde, pektus ekskavatum, sağ akciğer üst lob posterior, orta lob lateral ve medial segmentler, sol akciğer apikoposterior, üst lob anterior, lingula superior ve inferior, alt lob superior segmentlerde kollaps-konsolidasyonlar tespit edildi (Resim 1). Kraniyal ultrasonografisi, ekokardiyografisi normal bulundu. Abdominal ultrasonografisinde bilateral renal toplayıcı sistemler minimal dolgun, mesanede internal ekolar izlendi.

Adenovirus, RSV, parainfluenza, CMV serolojileri, gaita incelemesi, kan, idrar, BOS kültürleri normal tespit edildi. Hastanın ppd testi negatif bulunurken, annenin ppd testi 23x18 mm olarak ölçüldü. Anne baba ayrı yaşadığı için babadan tarama yapılamadı.

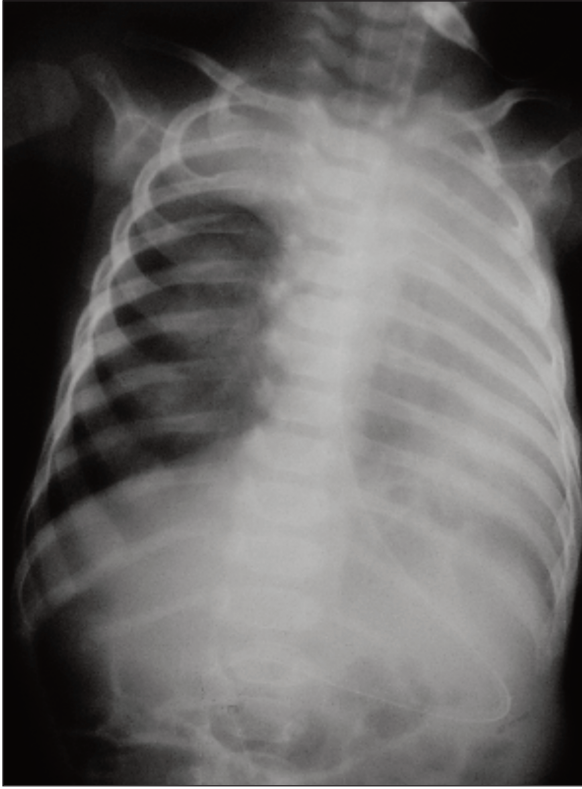
Hasta, akut toplum kaynaklı ağır pnömoni, ağır malnütrisyon, laringomalazi, bronkomalazi ön



RESİM 1: Olgunun toraks tomografisinde kollaps konsolidasyon alanları görülmüyor.

tanılarıyla izleme alındı. Hidrasyonu ve oksijenasyonu sağlanarak uygun antibiyotik başlandı. Hastanın takibinde krepitan ralleri geriledi, solunum seslerinde kabalaşma, kaba raller dışında akciğer sesleri düzelirken başını geriye atması, oral iyi beslenememesi ve stridoru devam etti ve aralıklı bol pürülan balgam çıkardığı gözlemlendi.

Akciğer dinleme bulgularının devam etmesi, anne ve bebeğin bol pürülan balgam çıkarıyor olması, toraks tomografisinde yaygın kollaps ve konsolidasyon alanlarının olması ve tüberküloz öyküsü olan çocukla temastan aile fertlerinin taramasının yapılamaması nedeniyle 'şüpheli tüberküloz' düşünülerek üçlü antitüberküloz tedavi başlandı. Açlık mide suyunda üç kez tüberküloz bakterisi ve PCR tetkiki normal bulunan, ppd testi negatif olan olguda antitüberküloz tedaviye yanıt alınmadı ve akciğer dinleme bulguları sebat etti. İyileşmeyen akciğer enfeksiyonuna yönelik yapılan diğer tetkiklerinde immünglobülinleri, C₃-C₄ değerleri, ter testi, alfa-1-antitripsin düzeyi ile baryumlu ön arka ve yan özofagografi normal bulundu. Takibinde çekilen akciğer grafilerinde yer değiştiren atelektazik alanlar izlendi (Resim 2). Çocuk Göğüs Hastalıkları tarafından değerlendirilen, laringomalazi-bronkomalazi düşünülen olgumuza bronkoskopi planlandı. Merkezimizde bronkoskopi cihazının olmaması ve Çocuk Göğüs Hastalıkları Bölümünün bulunduğu merkezde de cihazın bozuk olması nedeniyle bronkoskopi yapılamadı.



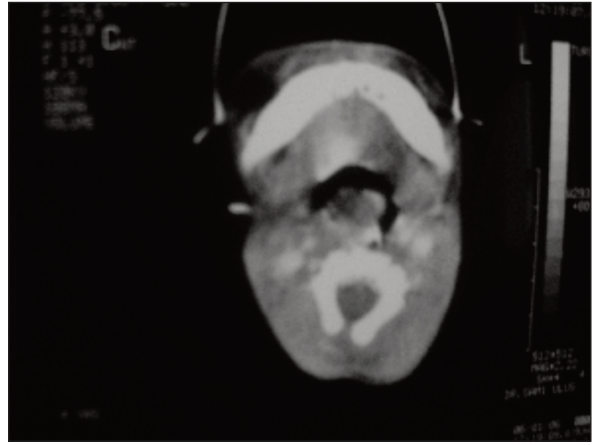
RESİM 2: PA akciğer grafisinde solda kapanma, sağ üstte atalektazi ve infiltrasyon izleniyor.

Hasta oksijensiz satürasyonlarının düşük seyretmesi, oral beslenememesi ve beslenme sonrası kusmaları nedeniyle akciğer dinleme bulguları düzelmesine rağmen taburcu edilemedi. İzleminde yatışının 41. gününde akciğer bulguları kötüleşen ve solunum yetmezliği gelişen hastaya mekanik ventilasyon desteği başlandı. Üç hafta süreyle mekanik ventilasyon uygulanan olgunun izleminde, entübasyon yapılırken larenks arka duvarında, daha önceki entübasyonlarda görülmeyen, kistik oluşum tespit edildi. Çekilen servikal tomografide hipofarenks düzeyinde, 1.2 x 1.4 cm boyutlarında kistik oluşum tespit edildi (Resim 3). Lokalizasyonu tanımlanan kist, cerrahi olarak çıkartıldı. Patoloji incelemesinde kesitlerde; nonkeratinize çok katlı yassı epitel ile örtülü kistik-polipoid lezyonun iç yüzünün yalancı çok katlı silli kolumnar epitel ile döşeli olup kist duvarında hyalin kıkırdak ve müsinoz bezler bulunduğu izlendi. Bu patoloji incelemesi ile bronkojenik kist tanısı kondu (Resim 4). Operasyonu yapılan hasta ventilatörden çıktı, beslenmeye, kilo almaya başladı ve taburcu edildi.

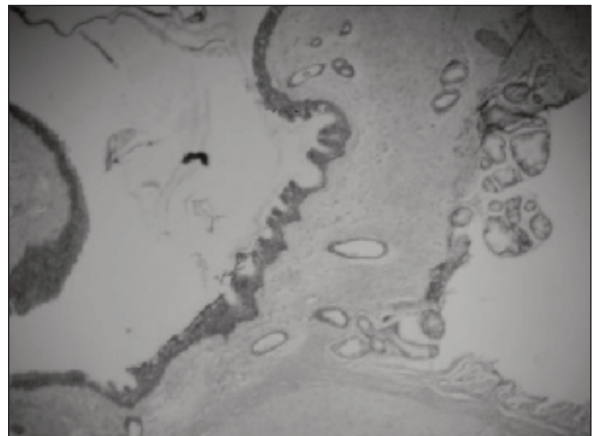
TARTIŞMA

İlk kez 1948'de Maier tarafından tanımlanan bronkojenik kist, trakea divertikülünün anormal tomurcuklanması ile meydana gelir. Bu tomurcuklanma erken gestasyonel dönemde oluşursa kistler trakea, karina, ana bronşlar ve mediastende, geç dönemde oluşursa intraparakimal yerleşirler. Genellikle tek, bazen tek ama multiloküle ve bazen de multipl olabilirler.^{1,5} Olguda erken gestasyonel evrede oluştuğu düşünülen tek multiloküle kist tespit edildi.

Bronkojenik kistler major klasifikasyona göre alt tiplerine ayrılır; paratrakeal, karinal, hiler, paraözofagial ve atipik lokalizasyonda olabilirler.



RESİM 3 Servikal tomografide hava sütununu posterolateralden daraltan lezyon görülüyor.



RESİM 4: Patoloji incelemesinde kistik lezyonun iç yüzünün yalancı çok katlı silli kolumnar epitel ile döşeli olduğu ve kist duvarında hyalin kıkırdak ve müsinoz bezler yer aldığı izleniyor.

Servikal bronkojenik kistler, boyun bölgesi kistlerinin nadir görülen formlarıdır. Literatürde rapor edilen 70 servikal bronkojenik kist vakasının dörtte üçü üst servikal yerleşimli, genellikle orta hatta, sıklıkla asemptomatik olup çoğunlukla boyun muayenesinde dışardan farkedilirler. Bu olgular sıklıkla boyunda ağrısız hareketli şişlik şikayeti ile başvururlar. Kistin belirli bir periyot içerisinde büyümesiyle cerrahi yoldan eksize edilerek patoloji incelenmeleri sonucu servikal bronkojenik kist tanısı almışlardır. Üçte bir kısmı ise, alt servikal yerleşimli, arka yan boyun kısmında ve toraks ile yakın ilişkili bulunmuşlardır. Bu grup servikal bronkojenik kistler ise sıklıkla stridor, solunum sıkıntısı, beslenme güçlüğü, persistan ve tekrarlayan solunum yolu enfeksiyonu ile başvururlar. Bu gruptaki hastaların tanısının genellikle bronkoskopi ve/veya laringoskopi ile konulduğu görülmektedir.^{3,4,6} Olgumuzda da bu ikinci grupta olduğu gibi kist, alt-arka servikalde yerleşerek bası bulgularına ve persistan pnömoneye yol açmış ve tanısı kistin entübasyon esnasında görülmesi ve servikal tomografi ile konmuştur.

Çocuklarda persistan veya tekrarlayan pnömoneinin birçok nedeni vardır ve konjenital nedenler önemli bir kısmını oluşturmaktadır. Doğumdan bu yana geçmeyen hırıltılı solunum, inspiratuar stridor, beslenme güçlüğü, ağır malnütrisyon ve başını geriye atması olgunun, doğuştan bir nedenle ilişkili iyileşmeyen akciğer enfeksiyonu olabileceğini düşündürdü. Konjenital nedenlerden en sık gözlemlediğimiz konjenital kalp hastalıkları, ekokardiyografi ile; konjenital amfizem, kistik adenomatoid malformasyon, pulmoner sekestrasyon, pulmoner hipoplazi-aplazi, pulmoner-mediastinal bronkojenik kist gibi konjenital pulmoner patolojiler iki yönlü akciğer grafisi ve toraks tomografisi ile; vasküler ring anomalileri baryumlu özofagografide indentasyon izlenmemesiyle ekarte edildi. Bronkomalazi, laringeal kist-web, laringesel ayrırımı için planlanan bronkoskopi, cihazın bozuk olması nedeniyle yapılamadı. Eğer başlangıçta bronkoskopi yapılabilseydi iyi bir kulak burun boğaz muayenesi ile tespit edilemeyen kistik lezyonun tanısı daha erken konulabilecekti ve ventilatörde izlem sürecine ihtiyaç olmayacaktı.

Hastaya entübasyon yapılırken görülen kistik oluşum nedeniyle çekilen servikal tomografide hipofarenks düzeyinde, 1.2 x 1.4 cm boyutlarında kistik oluşum tespit edildi ve cerrahi olarak eksize edildi (Resim 3).

Hastaların yarısından fazlası çocukluk yaş grubunda tanı alır. Mukoid materyal içeren bronkojenik kistlerin iç yüzeyi, solunum yolu epiteli döşelidir ve kıkırdak, düz kas, müköz gland içerebilir.^{3,5-7} Olgunun patolojisinde de, kist iç yüzünün yalancı çok katlı silli kolumnar epitel ile döşeli olup kist duvarında hyalin kıkırdak ve müsinoz bezler bulunduğu dikkati çekti.

Bronkojenik kistler %80 mediastinal, %14 intraparakimal yerleşim gösterirken bazen mediasten ve parankim dışında da yerleşebilirler.^{1,2,7} Nadiren servikal, diafragma, özofagus, subkutanöz, perikardial, intradural, tiroid bezinde gastrik yerleşim tanımlanmıştır.⁸⁻¹²

Bronkojenik kist olgularının çoğu asemptomatiktir. Özellikle bir yaş altı çocuklarda trakeaya bası ile solunum sıkıntısı, doğuştan itibaren olan hırıltılı solunum (olguda da olduğu gibi), siyanoz nöbetleri, vizing; özofagusa bası sonucu yutma ve beslenme güçlükleri ile başvururlar.^{2,7,13} Daha büyük çocuklar, tekrarlayan veya iyileşmeyen akciğer enfeksiyonu, kronik öksürük, stridor ve dispne ile getirilirler.^{2,3,14} Boyun bölgesindeki kistler bazen fistülize olup mukoid materyal direnaja veya sekonder enfeksiyon gelişimine neden olabilirler. Olguda başlangıçta fark edilmeyen ancak belirli bir zaman sürecinden sonra farkedilebilen kistik lezyonun, büyümesi sonucu görünür hale geldiği düşünüldü.

Mediastinal ve parankimal bronkojenik kist tanısı için genellikle akciğer grafisi ve toraks tomografisi yeterli olurken servikal kistlerin tanısı için iyi bir kulak burun boğaz muayenesi ve bazen bronkoskopi ve servikal tomografi gereklidir.^{1,2,13}

Histopatolojik olarak solunum yolu epiteli ile kaplı, düz kas, kıkırdak ve müköz bez içerebilen kist duvarı incelemesi ile kesin tanı konur.^{1,3,5,15}

Tedavisi cerrahidir ve asemptomatik olsalar bile tanının kesin olarak doğrulanabilmesi, ilerde olu-

şabilecek semptom ve komplikasyonların önlenmesi ve malignite gelişimi riski nedeniyle kistin cerrahi rezeksiyonu gerekmektedir.^{3,7,16} Hastamıza da cerrahi rezeksiyon uygulandı ve izleminde akciğer bulguları düzelerek kilo aldığı gözlemlendi.

SONUÇ

Tekrarlayan veya persistan pnömoni bulgularıyla başvuran hastalarda, konjenital nedenlerden bronkojenik kistler de düşünülmeli ve bronkojenik kist-

lerin akciğer parankimi ve mediasten dışında da yerleşebileceği göz önünde bulundurulmalıdır. Eğer üst solunum yolu obstruksiyonu bulguları varsa servikal bronkojenik kist de düşünülmelidir. Servikal bronkojenik kistlerin tanısı için iyi bir kulak burun boğaz muayenesi sıklıkla yeterlidir. Böyle bir muayene sonucu görülemeyen alt servikal yerleşimli kistlerin görülebilmesi, diğer nedenlerin ekarte edilebilmesi ve kistin çıkarılabilmesi için bronkoskopi yapılması önem taşımaktadır.

KAYNAKLAR

1. Maung KH, Low C, Knight LC, Cullinane CJ. Multiple cervical bronchogenic cysts. *J Laryngol Otol* 2006;120:145-7.
2. Sanli A, Onen A, Ceylan E, Yilmaz E, Silistreli E, Açikel U. A case of a bronchogenic cyst in a rare location. *Ann Thorac Surg* 2004;77:1093-4.
3. Gibbon CH, Sabiston DC, Spencer FC. Bronchopulmonary foregut malformation. In: Anderson RH. *Surgery of the Chest*. 5th ed. Philadelphia: W.B. Saunders; 1990, p. 530.
4. Ustundag E, Iseri M, Keskin G, Yayla B, Muezzinoglu B. Cervical bronchogenic cysts in head and neck region. *J Laryngol Otol*. 2005;119:419-23.
5. Di Lorenzo M, Collin PP, Vaillancourt R, Duranceau A. Bronchogenic cysts. *J Pediatr Surg*. 1989;24:988-91.
6. Pujary K, Pujary P, Shetty R, Hazarika P, Rao L. Congenital cervical bronchogenic cyst. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2001;57:145-8.
7. Mehta RP, Faquin WC, Cunningham MJ. Cervical bronchogenic cysts: a consideration in the differential diagnosis of pediatric cervical cystic masses. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2004;68:563-8.
8. Dharancy S, Lucidarme D, Gallon P, Creusy C, Mensier E, Filoche B. Bronchogenic cyst of the cervical esophagus. *Gastroenterol Clin Biol* 1998;22:836-8.
9. Liang MK, Yee HT, Song JW, Marks JL. Subdiaphragmatic bronchogenic cysts: a comprehensive review of the literature. *Am Surg*. 2005;71:1034-41.
10. Liang MK, Marks JL. Congenital bronchogenic cyst in the gastric mucosa. *J Clin Pathol*. 2005;58:1344.
11. Arslanoğlu A, Aygün N, Bilgiç H. Gross mural cartilage in a congenital bronchogenic cyst: MRI features. *Tuberk Toraks*. 2005;53:284-7.
12. Aktoğu S, Yuncu G, Halilçolar H, Ermete S, Buduneli T. Bronchogenic cysts: clinicopathological presentation and treatment. *Eur Respir J* 1996;9:2017-21.
13. Mampilly T, Kurian R, Shenai A. Bronchogenic cyst -- cause of refractory wheezing in infancy. *Indian J Pediatr*. 2005;72:363-4.
14. Topal U. Bronkojenik kist radyolojik görünüm-ler. *Tanıs ve Girişimsel Radyoloji*. 2003;9:333-8.
15. Kim SH, Han MH, Park SW, Chang KH. Radiologic-pathologic correlation of unusual lingual masses: Part I: congenital lesions. *Korean J Radiol*. 2001;2:37-41.
16. Endo C, Imai T, Nakagawa H, Ebina A, Kaimori M. Bronchioloalveolar carcinoma arising in a bronchogenic cyst. *Ann Thorac Surg*. 2000;69:933-5.