

## Astım Kliniği ile Başvuran Özefagiyal Kist

### Esophageal Cyst Who Presented with Asthma Like Symptoms: Case Report

Dr. Sevgi PEKCAN,<sup>a</sup>  
 Dr. Sevgi KELEŞ,<sup>a</sup>  
 Dr. Hasibe ARTAÇ,<sup>a</sup>  
 Dr. Bahar GÖKTÜRK,<sup>a</sup>  
 Dr. İsmail REİSLİ,<sup>a</sup>  
 Dr. Kemal ÖDEV,<sup>b</sup>  
 Dr. Olgun ARIBAŞ,<sup>c</sup>  
 Dr. Lema TAVLI<sup>d</sup>

<sup>a</sup>Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları AD,

<sup>b</sup>Radyoloji AD,

<sup>c</sup>Göğüs Cerrahi AD,

<sup>d</sup>Patoloji AD,

Selçuk Üniversitesi Meram Tıp Fakültesi,  
 Konya

Geliş Tarihi/Received: 24.03.2010

Kabul Tarihi/Accepted: 09.06.2010

Yazışma Adresi/Correspondence:

Dr. Sevgi PEKCAN

Selçuk Üniversitesi Meram Tıp Fakültesi,

Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları AD, Konya,

TÜRKİYE/TURKEY

sevgipekcan@yahoo.com

**ÖZET** Mediastinal kitleler yaşamın herhangi bir periyodunda farklı yerleşimlerde görülürler ve yerleşimlerine göre bulgu verebilir. Mediastinal kitlelerden olan özefagiyal kistler solunum sistemi ile beraber gelişir ve değişik klinik gösterebilirler. Özefagiyal kistler, nadir görülen ve genellikle çocuklarda değişken solunum sistemi şikayetlerine neden olan klinikopatolojik durumlardır. Yutma güçlüğü, öksürük, ateş, kilo kaybı, göğüs ağrısı, hemoptizi ve tekrarlayan pnömoniler ile başvurabilirler. Tanıda akciğer grafisi, ultrasonografi, akciğer tomografisi ve manyetik rezonans uygun yöntemlerdir. Tedavi kistin cerrahi çıkarılmasıdır. En uygun ameliyat zamanını semptomların ciddiyeti belirler. Biz de, üç aylıktan itibaren hırıltı ve öksürük şikayetleri olan, bu nedenle inhale bronkodilatör ve inhale steroid kullanan astım benzeri bulguları düzelmeyen, çekilen akciğer grafisinde trakeada progresif itilme gördüğümüz, özefagiyal kist tanısı alan ve astım benzeri bulguları ameliyat sonrası tamamen düzelen 18 aylık bir kız çocuk sunuyoruz.

**Anahtar Kelimeler:** Mediasten; özefagus kisti; astım; çocuk

**ABSTRACT** Mediastinal masses are seen in every period of life in different localisations. They can be silent or symptomatic. Among mediastinal masses, esophageal cysts proceed with heterogeneous clinic and grow up simultaneously with respiratory system. Esophageal cysts are rare clinicopathological conditions that usually cause variable respiratory symptoms in children. The patients can admit with dysphagia, cough, fever, weight loss, retrosternal chest pain, hemoptysis and recurrent pneumonia. Diagnostic studies include standard chest X-rays, ultrasonography, computed tomography scans, magnetic resonance imaging. Surgical excision of the cyst is the treatment option. The optimal timing for the operation is dictated by severity of the symptoms. We present a 18 month-old female with an esophageal cyst who presented with asthma-like symptoms resistant to inhaled steroid and bronchodilators since 3 month of age and whom had tracheal repression on chest X-ray and who revealed completely after the surgery.

**Key Words:** Mediastinum; esophageal cyst; asthma; child

**Türkiye Klinikleri Arch Lung 2010;11(2):86-91**

Mediastinal kitleler yaşamın hemen her döneminde, değişik yerleşimlerde görülürler. Semptomatik ya da asemptomatik olarak seyredebilirler. Mediastinal kitlelerin bir kısmını kistler oluşturur. Mediastinal kistler konjenital ve edinsel olabilirler. Mediastinal konjenital kitlelerden olan özefagiyal kistler solunum sistemi ile aynı zamanda

gelişen, heterojen klinik seyir ile giden oluşumlardır. İntrauterin 3-6 haftalar arasında ön barsaktan oluşan tomurcuklanmadaki hatalı gelişim sonucu nadiren oluşurlar. Özefagusa bası nedeniyle yutma güçlüğü, kilo kaybı, göğüs ağrısı, solunum sistemine bası nedeniyle de öksürük, tekrarlayan solunum yolu enfeksiyonları, hemoptizi, çıkarma, hırıltı, nefes darlığı gibi şikayetlerle gelebilirler.

Öksürük, hırıltı nedeniyle dış merkezde 3 aylıktan itibaren astım tanısı ile takip edilen ve şikayetlerinin devam etmesi nedeniyle araştırılıp özefagiyal kist saptanan hasta sunuldu.

## VAKA

Üç aylıktan itibaren öksürük ve hırıltı şikayetleri mevcut olan 18 aylık kız hastanın bu şikayetlerine yönelik olarak başlanan inhale salbutamol ve inhale steroid tedavisine cevap vermemesi nedeniyle ileri tetkik için hastanemize sevk edilmişti. Fizik muayene de vücut ağırlığı: 11 kg (75 persentil), boy: 81 cm (50 persentil), solunum sayısı: 46/dakika idi. Hastanın sitridoru mevcuttu ve sol akciğerin üst bölgesinde solunum seslerinin azaldığı saptandı. Çekilen posteroanterior (PA) akciğer grafisinde, trakeanın ileri derecede sağa yaylandığı ve solda mediasteninin geniş olduğu görüldü (Resim 1). Bunun üzerine çekilen boyun ultrasonografisinde torasik açıklık düzeyinde trakeayı laterale iten üst mediastene uzanım gösteren, orta hatta yaklaşık 40 x 40 mm hipointens kistik kitle lezyonu, özefagoduendoskopide özefagusa bası yapan kitle izlendi (Resim 2). Bilgisayarlı toraks tomografisinde (BT) ise üst mediastende solda trakeayı sağa öne iten düşük yoğunluklu yaklaşık 39 x 36 mm ebadında lezyon, boyun yumuşak doku toraks manyetik rezonans görüntülemesinde (MRG) ise tiroid glandı düzeyinde sol önyanda solid komponenti görülmeyen 30 x 47 x 44 mm boyutlarında toraks içine uzanan kistik lezyon saptandı (Resim 3). Lezyonun torakal bölgede damar yapıları baskıladığı ve trakeayı sağa doğru ittiği görüldü. Hastada kitlenin tamamı çıkarıldı. Operasyonda, özefagus komşuluğunda çevre dokulara yapışık 3

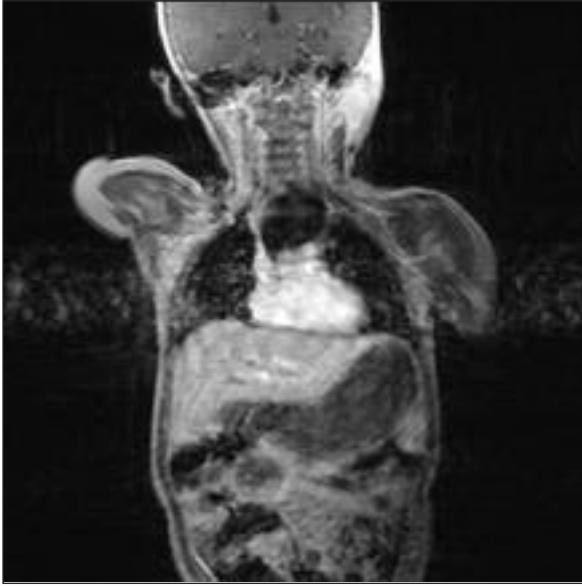


RESİM 1: PA akciğer grafisinde, trakeayı ileri derecede sağa yaylandıran ve solda üst zonu dolduran mediasten ile ilişkili, homojen opasite.



RESİM 2: Özefagoduendografide belirgin yaylanma.

x 4 cm'lik kistik lezyon saptandı. Kistin alt kısmının arkus aorta üzerine uzandığı ve kistin özefagus kas tabakasına sıkı bağ dokusu ile bağlı olduğu görüldü. Lezyon 2.8 x 2.5 x 2.5 cm boyutlarında düzgün görümlü pembe renkli 1-2 mm kalınlıkta duvar kalınlığı ve içinde hafif yapışkan beyaz sıvı olan kist görünümünde idi. Mikroskopik olarak kistik dokunun iç yüzeyi silial silendi-



**RESİM 3:** MRG'de sol önyan bölgede solid komponenti görülmeyen 30 x 47 x 44 mm boyutlarında torakal bölgede vasküler yapıları baskılayan ve trakeayı sağa doğru iten intratorasik uzanım gösteren kistik lezyon.

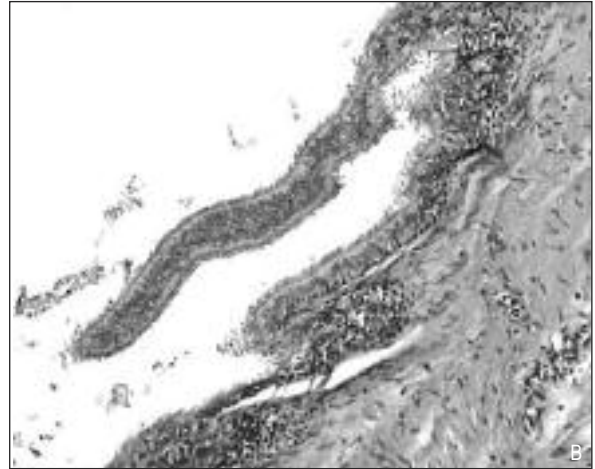
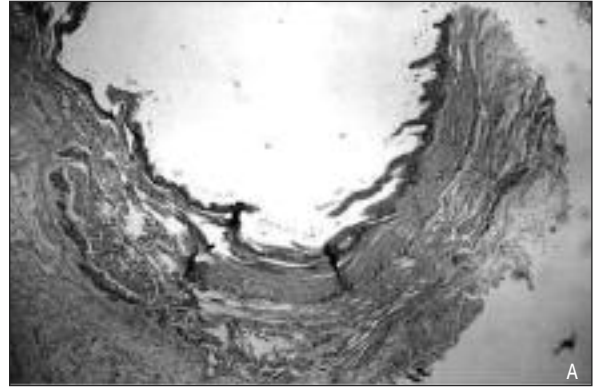
rik epitel ile döşeli idi ve duvarında yer yer çift sıralı düz kas dokusu ve bu alanlarda mononükleer iltihabi hücreler, konjesyone damarlar izlendi ve özefagiyal kist ile uyumlu bulundu (Resim 4 A ve B). Hasta ailesinden onam formu alındı. Hastanın ameliyat sonrasında hırıltı ve hışıltısı bir daha tekrarlamadı.

## TARTIŞMA

Mediastinum, toraks boşluğunun üstte toraks girişi, altta diagrafma, arkada vertebral kolon, önde sternum ve yanlarda paryetal plevra ile çevrilen kısımdır. Birçok mediasten kist ve tümörleri belirli lokalizasyonlarda bulunduğundan mediastinumda yerleşen lezyonların spesifik tiplerinin lokalize edilmesini kolaylaştırmak için mediastinum yapıları olarak bölümlere ayrılmıştır. Ön mediasten, primer mediastinal kitlelerin en sık yerleştiği bölümdür.<sup>1-3</sup> Özefagiyal kistler ise arka mediastende bulunur. Mediastinal kitleler büyüklükleri, lokalizasyonları, çevre dokulara olan invazyonları ve endokrin sisteme ait yan etkileri ile semptom verirler. Mediastinal kitleler %10-72 arasında değişen oranlarda asemptomatik kalabilmektedir.<sup>3-6</sup> Mediastinal kitle boyutu küçükse, genellikle belirti ve bulgu

yoktur. Başka bir nedenle çekilen rutin akciğer grafisinde saptanabilir. Komşu organlara bası varsa basıya bağlı belirtiler görülebilir. Büyük hava yolları, özefagus ve vena kava superiora bası, erozyon sonucunda dispne, öksürük, sitridor, yutma güçlüğü, boyun damarlarında dolgunluk, ödem, siyanoz gibi vena cava superior sendromu bulguları görülebilir. Hemoptizi olabilir. Bizim hastamızda da kitle, solunum yollarına bası yaparak çocukta bronkodilatör tedavi ile düzelmeyen hışıltı ve sitridora neden olmuştur.

Tanı için önce ayrıntılı öykü alınmalı, fizik muayene yapılmalıdır. Görüntüleme yöntemleri mediastinal kitlenin yerleşim yerini göstererek, ayırıcı tanıda önemlidir. Ön-arka ve yan akciğer grafileri ilk adımdır. Bilgisayarlı tomografi ya da MRG kitlenin yerleşimini, boyutunu, doğasını ve yayılımını daha iyi göstermek için sonraki adımdır. Mediastinal lezyonlar en iyi BT ile araştırılır.



**RESİM 4:** A-B: Kistik dokunun duvarında çift sıralı düz kas tabakaları görülmektedir. Kist iç yüzeyinin silialı silindirik epitel ile döşeli olduğu görülmektedir (HE, x20, HE, x100).

Akciğer grafilerine göre daha duyarlıdır. Bizim hastamızda da trakeal bölgede yaylanma görülmekteydi. Bilgisayarlı tomografi ile tespit edilen lezyonun dansitesine göre doğasını söylemek mümkündür, Mediastinum başlıca solid organlardan ibaret olduğu için ultrasonografik inceleme içinde uygundur. Özefagus grafisi ve skopi de bazı olgularda yardımcı olabilir. Kesin tanı için biyopsi gereklidir ve tanı histopatolojik olarak konur. Çocukluk döneminde bronkodilatör tedaviye iyi cevap vermeyen hastalarda bu nedenle önce akciğer grafisi sonrasında ise özefagografi, tomografi, magnetik rezonans ve boyun ultrasonografisi gibi ileri tetkikler olarak yapılmalıdır.<sup>2,7-9</sup>

Günümüzde malign hastalıkların sıklığındaki artışa karşın, mediasteninin benign kitleleri malign kitlelerinden daha sık oranda görünürler. Mediastinal kistik lezyonlar çocuklardaki mediastinal lezyonların yaklaşık %18'ini oluşturur. Mediasteninin çok çeşitli kistik lezyonları vardır ve sıklıkla orta mediastende görülür. Çoğu zaman tümörlerde olduğu gibi bası bulguları verirler. Mediastinal olarak bronkojenik kist, perikardiyal kist, timik kist, kistik higroma, kist hidatik, nöroenterik kist, duktus torasikus kistleri ve gastrik kistler görülebilir.<sup>6-9</sup> Bunların ayırıcı tanısında yardımcı olan en önemli yöntem patolojik incelemedir. Enterik duplikasyon kistleri intestinal epitel ile örtülü iken bronkojenik kistler solunum epiteli ile örtülüdür.<sup>10-12</sup> Bronkojenik kistler de erken embriyolojik dönemde gelişenler mediastende yerleşirler, trakea boyunca ve karina çevresinde yer alırlar. Bronkojenik kistler mediastinal veya hiler bölgeye yakın düzgün kenarlı lezyonlar olarak görülür. Solid-kistik ayırımı yapmak zor olabilir. Diğer mediasten kitlelerinden ve kistlerinden ayırımı zor olabilir. Bronkojenik kistlerin duvarı solunum sistemi epitelyumu ile döşelidir. Duvarında kıkırdak, bronş bezleri ve düz kaslar bulunabilir. Sekretuar hücreler nedeniyle içi mukoid bir materyalle doludur. İnce duvarlı, bronşiyal epitel ile döşeli ve mukus ile dolu oluşumlardır. Tek veya çoğul olabilirler. Beyaz-pembe renklidirler. Duvarlarında kıkırdak dokusu bildirilmiştir. Hava yolları ile

ilişkileri bulunabilir. Büyük çocukta akciğer grafisinde rastlantısal bir kitle görülmesiyle tanı konur. Küçük çocukta solunum bulguları ön plandadır.<sup>12-15</sup> Nöroenterik kistler ise vertebral anomaliler ile birlikte veya sinir sistemi ile ilişkisi vardır. Masie ve ark.<sup>4</sup> 55 mediastinal kitle açık biyopsi sonucundan beşinde enterik kist ve duplikasyon saptanmışken, Simpson<sup>3</sup> 121 hastanın 10'unda enterik kist saptamıştır. Mediasten tümör ve kistlerinin çocuklarda yaklaşık 2/3'ü semptomatiktir. Halbuki bu oran yetişkinlerde ise 1/3'dür. Öksürük, hışıltı, tekrarlayan pnömoni, kilo kaybı, kilo alamama, yutma güçlüğü, sternum arkasında ağrı, ateş, hemoptizi gibi bulgular görülür. Akciğerin konjenital kistleri ile ilgili olarak Takeda ve ark.<sup>9</sup> 26 hastalık bir çalışmada bir yaş altında solunum sıkıntısı ve mediastinal kaymanın asıl bulgu olduğunu enfeksiyonun daha az rastlandığını, bir yaş üstünde ise solunum sıkıntısı olmaksızın tekrarlayan enfeksiyonlar olduğunu gözlemlemişlerdir. Dispne ve disfaji sık rastlanan bulgu iken stridor daha nadir bir bulgu olarak karşımıza çıkmaktadır.<sup>9,16</sup> Literatürde yenidoğan ve süt çocuğu döneminde stridoru olan çok az vaka mevcuttur.<sup>17,18</sup> Bazen yaşamı tehdit eden komplikasyonlar gelişebilmektedir. Bizim hastamız semptomatik gruptaydı.

Giyal kistler embriyonik gelişimin 3-6. haftası arasında ön barsağın hatalı gelişimi sonucu ortaya çıkan nadir anomalilerdir.<sup>17</sup> Özefagus kistleri embriyonik hayatın 3-6 haftaları arasında foregut kanalının gelişim anomalileri sonucunda görülür.<sup>19</sup> Mediastinal gastrik kistler her yaş grubunda görülmekle beraber yaşamın ilk birkaç yılında daha sık tesbit edilir.

Ön barsağın vakuolizasyonunun tam olamamasından enterik kistler ortaya çıkar. Düz kas ile çevrilidirler. Enterojenik kist, özefagiyal kist, enterik kist, özefagiyal duplikasyon gibi çeşitli isimler alır. Sıklığı 8200'de 1 olarak bulunmuştur ve erkeklerde daha sıktır.<sup>19</sup> Özefagus duvarı ile bitişik durumdadırlar. Nadiren lümenle ilişkileri bulunabilir. Özefagiyal ya da gastrik epitel ile döşelidirler. Enterik kistlerde intramural adrenal kortikal artıklar



bildirilmiştir. Enterik kistler arka mediastende ve boyunda yerleşirler. Özefagiyal kistlerin %60'ı özefagus 1/3 alt kısmında görülür ve sıklıkla sağ arka alt bölgede yerleşimlidir.<sup>10,20</sup> Cioffi ve ark.nın<sup>15</sup> serisinde 11 özefagiyal duplikasyon kistinin 9'u sağ arka alt yerleşimli iken bir hastada üst mediasten yerleşimlidir. Bizim hastamızda ise sol üst mediasten yerleşimli idi. Boyutları da genellikle 3-5cm arasında bulunmuştur.

Gastroenterik kistlere %12 sıklıkla eşlik eden diğer anomaliler söz konusudur.<sup>10,14,17</sup> Literatürde spina bifida, hemi vertebra, kelebek vertebra ve vertebral yapışıklık gibi vertebral anomalilerin eşlik ettiği bildirilmiştir.<sup>10,14-16,19,20</sup> Bizim hastamızda ise eşlik eden vertebral anomali tesbit edilmedi.

Çoğu olguda enterik kistler semptomatiktir. Özefagiyal kistlerde intrakistik hemoraji, perforasyon, enfeksiyon gibi komplikasyonlar görülebilir ve skuamoz metaplazi gelişebilir.<sup>15</sup> Tedavi,

kitlenin hepsinin çıkarılmasıdır. Cerrahi, hastanın semptomu olmasa bile semptom ve komplikasyonlar gelişebileceğinden önerilir. En uygun ameliyat zamanı bulguların ciddiyetine bağlıdır. Ayırıcı tanıda üst arka mediasten kitleleri olan bronkojenik kistler ve nörojenik neoplazmlar akılda tutulmalıdır.<sup>2-16,18-20</sup> Bronkojenik kistler özefagiyal kistlerden daha siktir. Bizim hastamızın da solunum sistemi bulguları düzelmediğinden kist total olarak çıkarıldı ve bundan sonra takipte hastanın bulguları tamamen düzeldi ve şikayetleri tekrarlamadı.

Mediasten tümörleri benign olsa bile yaşamsal yapılara bası yapabileceğinden ve bazıları da ileride malign değişiklikler gösterebileceğinden cerrahi olarak çıkartılması gerekir.<sup>14,15,21,22</sup>

Sonuç olarak süt çocuğu döneminde düzelmeyen ve bronkodilatör tedaviye cevap vermeyen astım bulguları varlığında sık görülmemekle beraber mediastinal kitleler akılda tutulmalıdır.

## KAYNAKLAR

- Whitten CR, Khan S, Munneke GJ, Grubnic S. A diagnostic approach to mediastinal abnormalities. *Radiographics* 2007;27(3):657-71.
- Franco A, Mody NS, Meza MP. Imaging evaluation of pediatric mediastinal masses. *Radiol Clin North Am* 2005;43(2):325-53.
- Simpson I, Campbell PE. Mediastinal masses in childhood: a review from a paediatric pathologist's point of view. *Prog Pediatr Surg* 1991;27:92-126.
- Massie RJ, Van Asperen PP, Mellis CM. A review of open biopsy for mediastinal masses. *J Paediatr Child Health* 1997;33(3):230-3.
- Kern JA, Daniel TM, Tribble CG, Silen ML, Rodgers BM. Thoracoscopic diagnosis and treatment of mediastinal masses. *Ann Thorac Surg* 1993;56(1):92-6.
- Demirkaya A, Kaynak K. [Mediastinal cysts]. *Türkiye Klinikleri J Surg Med Sci* 2006;2(47):23-6.
- Schwartz MZ, Ramachandran P. Congenital malformations of the lung and mediastinum--a quarter century of experience from a single institution. *J Pediatr Surg* 1997;32(1): 44-7.
- Stanton M, Njere I, Ade-Ajayi NA, Patel S, Davenport M. Systematic review and meta-analysis of the postnatal management of congenital cystic lung lesions. *J Pediatr Surg* 2009;44(5):1027-103.
- Takeda S, Miyoshi S, Minami M, Ohta M, Masaoka A, Matsuda H. Clinical spectrum of mediastinal cysts. *Chest* 2003;24(1):125-32.
- Matsumura Y, Handa M, Saito R, Ichinose T, Shiraishi Y, Sasaki H, et al. [Clinicopathologic assessment of esophageal cysts--a report of 8 cases]. *Nippon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* 1990;38(6):982-8.
- St-Georges R, Deslauriers J, Duranceau A, Vaillancourt R, Deschamps C, Beauchamp G, et al. Clinical spectrum of bronchogenic cyst of the mediastinum and lung in the adult. *Ann Thorac Surg* 1991;52(1):6-13.
- Reed JC, Sabonya RE. Morphologic analysis of foregut cyst in the thorax. *Am J Rontgenol* 1974;120(4):851-90.
- Ribet ME, Copin MC, Gosselin B. Bronchogenic cyst of the mediastinum. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1995;109(5):1003-10.
- Nobuhara KK, Gorski YC, La Quaglia MP, Shamberger RC. Bronchogenic cysts and esophageal duplications: common origins and treatment. *J Pediatr Surg* 1997;32(10):1408-13.
- Cioffi U, Bonavina L, De Simone M, Santambrogio L, Pavoni G, Testori A, et al. Presentation and surgical management of bronchogenic and esophageal duplication cysts in adults. *Chest* 1998;113(6):1492-6.
- Moulton MS, Moir C, Matsumoto J, Thompson DM. Esophageal duplication cyst: a rare cause of biphasic stridor and feeding difficulty. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2005;69(8):1129-33.
- Stewart RJ, Bruce J, Beasley SW. Oesophageal duplication cyst: another cause of neonatal respiratory distress. *J Pediatr Child Health* 1993;29(5):391-2.
- Eichmann D, Engler S, Oldigs HD, Schroeder H, Partsch CJ. Radiological case of the month. Denouement and discussion: congenital esophageal duplication cyst as a rare cause of neonatal progressive stridor. *Arch Pediatr Adolesc Med* 2001;155(9): 1067-8.

19. Arbona JL, Fazzi JG, Mayoral J. Congenital esophageal cyst: case report and review of literature. *Am J Gastroenterol* 1984;79(3): 177-82.
20. Rattan KN, Magu S, Rohilla S. Mediastinal foregut duplication cysts. *Indian J Pediatr* 2004;71(1):103-5.
21. Essodegui F, Benjelloun A, Zamiati W, Gharbi A, Ksiyer M. Upper esophageal duplication. Apropos of a case disclosed by respiratory distress. *Ann Radiol* 1996;39(4-5): 193-6.
22. Chaves M, Simões AS, Matos C, Leal F, Marques VA, Couto HS. Esophageal duplication cyst - A cause of early respiratory distress in the neonate. *Early Hum Dev* 2008;84(Suppl 1):S115.