

Yedi Günlük Bir Yenidoğanda Konjenital Laringeal Sakküler Kist

Congenital Laryngeal Saccular Cyst of a 7-Day Newborn: Case Report

Melek Kezban GÜRBÜZ,^a
Akif ABAKAY,^a
Dilşad DERELİ,^b
Hüseyin İLHAN^c

^aKBB AD,
^cÇocuk Cerrahisi AD,
Eskişehir Osmangazi Üniversitesi
Tıp Fakültesi,
^bÇocuk Cerrahisi Kliniği,
Eskişehir Doğum ve
Çocuk Hastalıkları Hastanesi, Eskişehir

Geliş Tarihi/Received: 21.01.2011
Kabul Tarihi/Accepted: 27.04.2011

Yazışma Adresi/Correspondence:
Melek Kezban GÜRBÜZ
Eskişehir Osmangazi Üniversitesi
Tıp Fakültesi,
KBB AD, Eskişehir,
TÜRKİYE/TURKEY
mkezban@yahoo.com.tr

ÖZET Larinksin konjenital kistleri yenidoğanda üst solunum yolu tıkanıklığı yapan nadir nedenlerdendir. Laringeal sakkül, ventrikül tavanının üst kısmında ventriküler band ve tiroid kartilaj arasında uzanan girintidir. Laringeal sakküler kistler bu bölgede submukozal glandların orifislerinin konjenital veya edinsel sebeplerle tıkanması sonucu oluşur. Lokalizasyonlarına göre "lateral veya anterior sakküler kist" olarak isimlendirilirler. Kistin lokalizasyonuna veya büyüklüğüne bağlı değişebilecek düzeyde takipne, zayıf ağlama, beslenme zorluğu gibi semptomlar ve stridor, supraklavikuler ve retrosternal çekilmeler gibi bulgular gelişebilir. Larinksin endoskopik muayenesi ve bilgisayarlı tomografisi tanıda yardımcıdır. Tedavide kistin drenajı, marsupiyalizasyonu, endoskopik diatermi veya eksternal yolla kistin eksizyonu önerilmektedir. Bu yazıda, 7 günlük bir yenidoğanda laringeal sakküler kist olgusu sunulmaktadır.

Anahtar Kelimeler: Larinks; konjenital; kistler; bebek, yenidoğan

ABSTRACT Congenital cysts of the larynx are an unusual cause of airway obstruction in newborns. The sacculle is a diverticulum located in the superior part of the laryngeal ventricle roof, lying between the ventricular band and thyroid cartilage. A saccular cyst occurs when the orifice of the submucosal glands in this region becomes blocked with congenital or acquired causes. According to localization they are named as lateral or anterior saccular cysts. In respect of their size and localization symptoms like tachypnea, slight crying, difficulty in eating and findings like stridor, supraclavicular and retrosternal retractions can be seen. Laryngeal endoscopic examination and computerized tomography are helpful for diagnosis. Drainage of cyst, marsupialization, endoscopic diathermia or excision with external approach are recommended for treatment. Herein we present a case of saccular cyst in a 7 day newborn .

Key Words: Larynx; congenital; cysts; infant, newborn

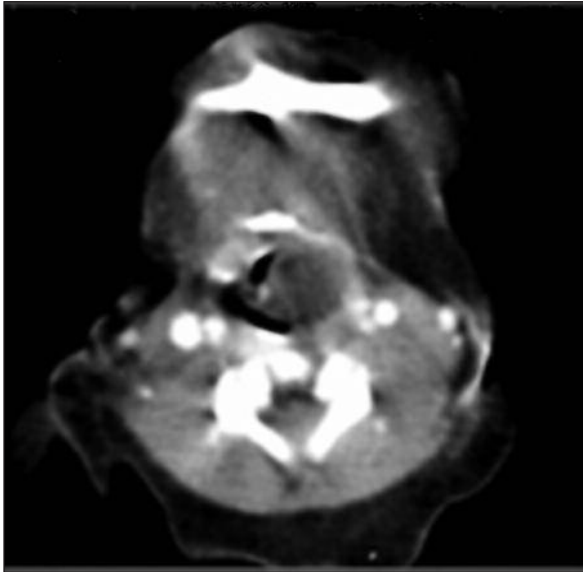
Türkiye Klinikleri J Pediatr 2012;21(2):117-20

Laringeal sakküler kistler larinks sakkülünün ventriküle açıldığı yerde tıkanıklık sonucu mukus ile genişlemesiyle oluşur. Laringesel, larinkomukosel veya laringopiyosel kavramları ile zaman zaman karıştırılabilirler.^{1,2} Tanı ve tedavi yöntemlerinin benzer olmasına rağmen bu patolojilerin ayırıcı tanısı mesleki açıdan önemli olabilir. Yazımızda, 7 günlük bir yenidoğanda laringeal sakküler kist olgusunu literatürdeki örnek olgular eşliğinde tartışarak sunmaktayız.

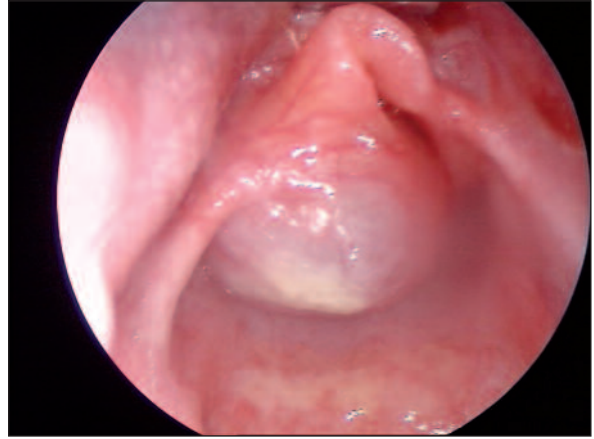
OLGU SUNUMU

Sezaryenle 39 haftalık 3660 gram doğan 7 günlük erkek yenidoğan, solunum sıkıntısı şikâyetiyle kliniğimize getirildi. Olgunun fizik muayenesinde üst so-

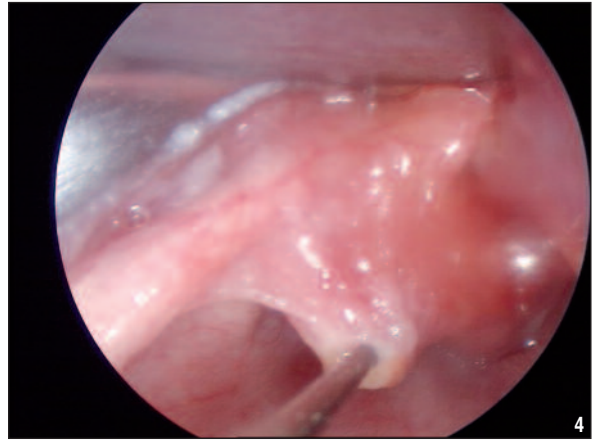
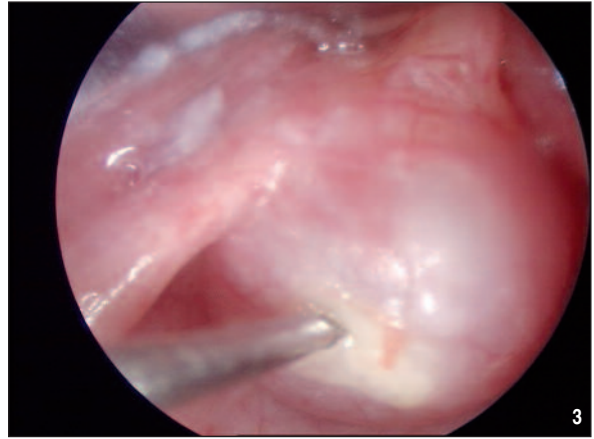
lunum yolu tıkanıklığını destekleyen supraklavikuler ve retrosternal çekilmeler mevcuttu, siyanoz yoktu. Oksijen saturasyonları yüz üstü yatış pozisyonunda %98-100 iken, sırt üstü yatışlarda %90'ın altında seyretti. Fleksibl endoskopik larinks muayenesinde sol ariepiglottik plikadan kaynaklanan ve kord vokallerin görülmesini engelleyen düzgün yüzeyli kistik kitle görüldü. Kontrastlı bilgisayarlı tomografi (BT)'de sol ariepiglottik bölgede 1.5 cm büyüklüğünde kistik kitle tespit edildi (Resim 1). Olguya konjenital laringeal kist ön tanısıyla Pediatric Cerrahi bölümü ile birlikte operasyon planlandı. Olguda orotrakeal entübasyon güçlüğü düşünülerek maske ile genel anestezi induksiyonu eşliğinde trakeotomi açıldı. Ardından olgu trakeotomi yerinden entübe edildi. Bronkoskop eşliğinde sol ariepiglottik bölgedeki kistik kitle marsupiyelize edildi (Resim 2). İşlem sırasında kitle içinden 1 cc mukoid sıvı boşaldı. Kord vokallerin ve diğer laringeal yapıların doğal olduğu, glottik açıklığın yeterli olduğu görüldü (Resim 3-5). Kist içeriği ve kist duvarı histopatolojik incelemeye gönderildi. Dekanülasyon sonrası klinik izleminde komplikasyon ile karşılaşmayan hasta 3. gün taburcu edildi. Hastamız postoperatif 9. ayda halen takip edilmektedir. Postoperatif 9 ay izlenen hastada solunum sıkıntısı tekrarlamamış ve endoskopik muayenelerinde nüks saptanmamıştır.



RESİM 1: Kontrastlı bilgisayarlı boyun tomografisi (aksiyel kesit); sol ariepiglottik bölgede 1,5 cm büyüklüğünde kistik kitle.



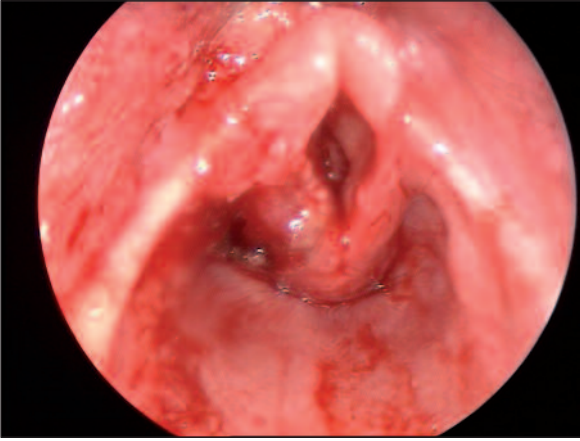
RESİM 2: Sol ariepiglottik bölgedeki kistik kitlenin endoskopik görüntüsü. (Renkli hali için Bkz. <http://pediatri.turkiyeklinikleri.com/>)



RESİM 3-4: Kistik kitlenin endoskop eşliğinde marsupiyelizasyonu. (Renkli hali için Bkz. <http://pediatri.turkiyeklinikleri.com/>)

TARTIŞMA

Laringeal sakkül, ventrikül tavanının üst kısmında ventriküler band ve tiroid kartilaj arasında uzanan bir divertiküldür. Sakkül mukozasının altında ince



RESİM 5: Kistik kitlenin marsupiyalize edildikten sonraki görüntüsü.
(Renkli hali için Bkz. <http://pediatri.turkiyeklinikleri.com/>)

bir kas tabakası bulunur. Bu tabaka kasılarak sakkül sekresyonları ventriküle boşalır.³

Laringeal sakküler kist, larinksin sakküler hastalıklarındandır. Sakkül bölgesinde submukozal glandların orifislerinin konjenital veya edinsel sebeplerle tıkanması sonucu oluşur ve içi mukus ile doludur.⁴ Konjenital kistler genellikle orifisin atrezisi veya migrasyon bozukluğu sonucu oluşurken edinsel kistlerin larinjektomi, uzun süreli entübasyon veya tüberküloz sonrası oluşabileceği bildirilmiştir.^{1,2} Lokalizasyonlarına göre “lateral veya anterior sakküler kist” olarak isimlendirilirler. Lateral sakküler kistler genellikle ariepiglottik kıvrımda veya larinksin lateral duvarında, anterior sakküler kistler ise larinksin orta hattında, kordvokaller ve ventriküller arasında yerleşim gösterirler.^{2,3,5} Kistin ariepiglottik plika yerleşimi nedeniyle, olgumuzdaki lateral sakküler kist olarak kabul edilmiştir.

Olgularda kistin lokalizasyonuna veya büyüklüğüne bağlı değişebilecek düzeyde takipne, zayıf ağlama, beslenme zorluğu gibi semptom ve stridor, supraklavikuler ve retrosternal çekilmeler gibi bulgular gelişebilir. Stridor daha çok inspirasyonda belirgindir, ancak ekspirasyonda da görülebilir. Bu semptomlar şüphesiz laringeal sakküler kistlere özgü olmayıp üst solunum yolu tıkanıklığına neden olabilecek başka patolojilerde de ortaya çıkabilir.^{1,4,5} Sakküler kist, özellikle klinik tablo ve laringeal muayene bulgu benzerliği nedeniyle larinksin

diğer sakküler hastalıklarından biri olan laringesel ile karıştırılabilir. Laringesel, ventrikül sakkülünün hava ile dolu dilatasyonudur. Laringomukosel veya laringopiyosel şeklinde olabilir. Sakküler kist hava içermez ve kistin lümeni larinks içiyle ilişkide değildir. Bu özellikleriyle laringesel, laringomukosel ve laringopiyoselden ayrılır.

Pediyatrik solunum yolu hastalıklarının muayenesinde pediyatrik fiberoptik fleksibl bronkoskopi kullanılabilir.⁶ Kliniğimizde bu aletin bulunmaması nedeni ile olgumuzun endoskopik muayenesi erişkin tip fleksibl nazofaringolarinoskop ile oral yoldan yapıldı. Larinkste sol ariepiglottik plikadan kaynaklanan ve kord vokallerin görülmesini engelleyen düzgün yüzeyli kistik kitle görüldü. Olgumuzun klinik tablosu ve muayene bulguları bize öncelikle laringesel, laringomukosel veya laringopiyosel öntanısını düşündürdü. Bu tip olgularda ileri tanı yöntemi olarak lateral boyun grafileri, BT ve manyetik rezonans görüntüleme (MRG) yöntemlerinden faydalanılabilir.^{7,8} Olgumuzun kontrastlı boyun BT'sinde bir internal laringesel için tipik olan içi hava dolu kist görüntüsü yoktu. Sol ariepiglottik bölgede içi mukus ile dolu olduğu düşünülen ve lümeni larinks içiyle ilişkisiz kistik kitle görüntüsü mevcuttu. Endoskopik muayene ve radyolojik inceleme sonucu laringeal sakküler kist düşünülen olguda, operasyon bulguları ve histopatolojik inceleme ile öntanı doğrulandı.

Sakküler kistlerin tedavisinde kistin iğne ile ponksiyonu, marsupiyalizasyonu, endoskopik diatermi veya eksternal yolla eksizyonu önerilmektedir. Büyük kistlerde eksternal yaklaşım, küçük kistlerde ise endoskopik yöntemler tercih edilmektedir. Kistin endoskop eşliğinde iğne ile ponksiyon veya marsupiyalizasyonu sonrasında nüks oranının yüksek olduğu bilinmektedir. Ancak eksternal yaklaşıma göre daha az invaziv olması nedeniyle endoskopik yöntemler günümüzde tercih edilmektedir. Endoskopik girişimler sonrası karşılaşılan başarısızlık veya nüks durumlarında eksternal açık cerrahi yöntemler önerilmektedir.^{2,9-11} Cerrahi öncesinde trakeotomi açılması tercih edilmese de orotrakeal entübasyonun mümkün olmadığı olgularda trakeotomi gerekebilir. Olgumuzda da orotrakeal entübasyon güçlüğü düşünülerek maske ile

genel anestezi induksiyonu eşliğinde trakeotomi açıldıktan sonra bronkoskop eşliğinde kistik kitle marsupiyalize edildi. Hastamızın ameliyat sonrası 9 aylık izleminde nüks ile karşılaşmadı.

Sonuç olarak laringeal sakküler kistler nadir konjenital patolojilerdendir. Yenidoğanlarda solunum

sıkıntısı varlığında ayırıcı tanıda akılda tutulmalıdır. Boyut ve lokalizasyonlarına bağlı olarak değişecek ölçüde erken ya da geç dönemde belirti verebilirler. Tanı ve tedavileri geciktiği takdirde asfiksi nedeni ani ölümlere ve beslenme güçlüklerine bağlı olarak gelişme geriliklerine neden olabilirler.^{4,5,12}

KAYNAKLAR

1. Tosun F, Söken H, Ozkaptan Y. Saccular cyst in an infant: an unusual cause of life-threatening stridor and its surgical treatment. *Turk J Pediatr* 2006;48(2):178-80.
2. Thabet MH, Kotob H. Lateral saccular cysts of the larynx. Aetiology, diagnosis and management. *J Laryngol Otol* 2001;115(4):293-7.
3. Ünal ÖF. [Laryngeal congenital abnormalities]. *Türkiye Klinikleri J E.N.T.* 2003;3(2):137-42.
4. Evans DA. Saccular cyst of the larynx. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;128(2):303-4.
5. Arslan M, Erkam Ü, Dağoğlu MH. [Combine larengesel]. *K.B.B. ve B.B.C Dergisi* 1993;1(3):145-8.
6. Yüksel H, Söğüt A, Topçu İ, Yılmaz Ö, Okkalı Z, Keleş G. [Flexible fiberoptic bronchoscopy experience in childhood: evaluation of 96 cases]. *Toraks Dergisi* 2008; 9(1):17-21.
7. Coşkuner T, Akbulut S, Paksoy M, Ünver Ş. [Mix type laryngomucocele]. *J Kartal TR* 2000;11(3):934-7.
8. Ülkü ÇH, Uyar Y, Avunduk MC, Köroğlu D. [Pediatric internal laryngocele: a case report]. *KBB ve BBC Dergisi* 2008;16(3):129-32.
9. Mariën S, Jaspers A, Vidts G, Schmelzer B. Congenital laryngeal cyst: a case report. *Acta Otorhinolaryngol Belg* 2003;57(2):119-21.
10. Kristensen S, Tveterås K. Congenital laryngeal cyst in infancy. A rare cause of life-threatening stridor. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec* 1986;48(3):150-5.
11. Kirse DJ, Rees CJ, Celmer AW, Bruegger DE. Endoscopic extended ventriculotomy for congenital saccular cysts of the larynx in infants. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;132(7):724-8.
12. Kastowsky TK, Stevenson MP, Duflo JA. Sudden death from saccular laryngeal cyst. *J Forensic Sci* 2006;51(5):1144-6.