

Erken Tanı Almış Bir İzole Trakeoözofageal Fistül Hastası

Olga Devrim Ayvaz*, Serdar Moraloğlu*, Osman Zeki Pektaş*, Ayşenur Cerrah Celayir*, Aysu Say**, Irmak Dicle Sargin**

*Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Cerrahisi Kliniği

**Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Kliniği

ÖZ

İzole trakeoözofageal fistül (TÖF); beslenme sırasında aspirasyon semptomları, sağ üst lob pnomoni veya atelektazileri ile belirti verir ve genellikle hastalar geç sütçocukluğu döneminde tanı almaktadır. Bu çalışmada, erken tanı almış bir izole TÖF hastasının tanı ve tedavi süreci sunulmuştur. İki aylık kız hasta, beslenme sırasında öksürük, morarma, hırıltılı solunum yakınmaları ve akciğer grafisinde sağ üstte pnomonik infiltrasyon görünümü ile tarafımıza konsülte edildi. İki kez aspirasyon pnomonisi öntanısıyla yatarak tedavi edilme öyküsü mevcuttu. Bronkoskopi ile izole TÖF saptandı, sağ servikal yaklaşımla N tipindeki fistülün ligasyonu yapıldı. Poliklinik takiplerinde halen sorunsuzdur. Doğum sonrası erken dönemlerde reflü medikasyonuna rağmen, beslenme sırasında başlayan öksürük, siyanoz, hırıltılı solunum gibi aspirasyon semptomları olması ve tekrarlayan sağ üst lob infiltrasyonlarında izole TÖF olasılığı daima akılda tutulmalıdır; bu olgularda tanısal bronkoskopi yapılması geciktirilmemelidir.

Anahtar kelimeler: bronkoskopi, izole trakeoözofageal fistül, özofagoskopi

ABSTRACT

Early Diagnosed Patient With Isolated Tracheoesophageal Fistula

Isolated tracheoesophageal fistula (TEF) usually could be symptomatic with symptoms of aspiration and aspiration pneumonia or atelectasis in late infancy period. In this study, process of the diagnosis and treatment in a patient with isolated TEF diagnosed in early infancy, was presented. Two months old girl patient was referred to our department due to cough, and bruising, and wheezing during the feeding, and complaint with the appearance of atelectasis on the upper right side seen at chest radiographs. Until two months old with a diagnosis of aspiration pneumonia was hospitalized in the neonatal intensive care unit had a history of. In bronchoscope orifice of the TEF was seen, and fistula was ligated with the right cervical approach. Follow-ups were uneventful. Performing of the bronchoscopy should not be delayed for diagnosis of isolated TEF in presence of cough, cyanosis, and wheezing episodes during the nutrition and recurrent right upper lobe pneumonia.

Keywords: bronchoscopy, isolated tracheoesophageal fistula, esophagoscopy

GİRİŞ

İlk orjinal tanımlaması 1873 yılında Lamb tarafından yapılan ⁽¹⁾ izole trakeoözofageal fistülün (TÖF) ilk cerrahi onarımı Imperatori tarafından 1939'da yapılmıştır ⁽²⁾.

İzole TÖF konjenital trakeoözofageal patolojiler arasında %4-5 oranında görülmektedir ⁽²⁻⁵⁾. TÖF'lerin %98'i özofagus atrezisi ile birlikte görüldüğü için postnatal erken dönemde tanı konulabilmektedir ⁽⁶⁾. Ancak izole TÖF'lerin tanınması genellikle geç sütçocukluğu dönemine doğru ve hatta nadiren erişkin dönemde olmaktadır ^(1,3,6). İzole TÖF; beslenme

sırasında veya sonrasında aspirasyon semptomları ile kendini belli eder. Sık olarak aspirasyon pnömonisi geçiren sütçocuklarında gastroözofageal reflü (GÖR) sonrası ilk sırada düşünülmesi gereken bir patoloji TÖF'dür ⁽⁷⁾.

Bu çalışmamızda, iki ay gibi oldukça erken dönemde tanı almış bir izole TÖF'lü prematüre olgu sunulmuş ve tanı, ayırıcı tanı ve tedavi süreci literatür eşliğinde tartışılmıştır.

OLGU SUNUMU

Kusma sonrası hırıltılı solunum yakınması ile Çocuk

Alındığı Tarih: 17.11.2015

Kabul Tarihi: 08.03.2016

Yazışma adresi: Uzm. Dr. Olga Devrim Ayvaz, Yunusre Cad. Uğurmumcu Mah. Oğulkent Sitesi A Blok Kat:8, No:26, Kartal-İstanbul
e-posta: olga_ozbay@yahoo.com

Acil Kliniğine başvuran iki aylık 2600 g kız hasta, yenidoğan ünitesinde aspirasyon pnomonisi ve GÖR ön tanısı ile interne edildi. Oral beslenme sırasında öksürük, morarma, hırıltılı solunum yakınmalarının olması ve akciğer grafisinde sağ üstte pnomonik infiltrasyon saptanması nedeniyle Çocuk Cerrahisi Kliniğine konsülte edildi (Resim 1).

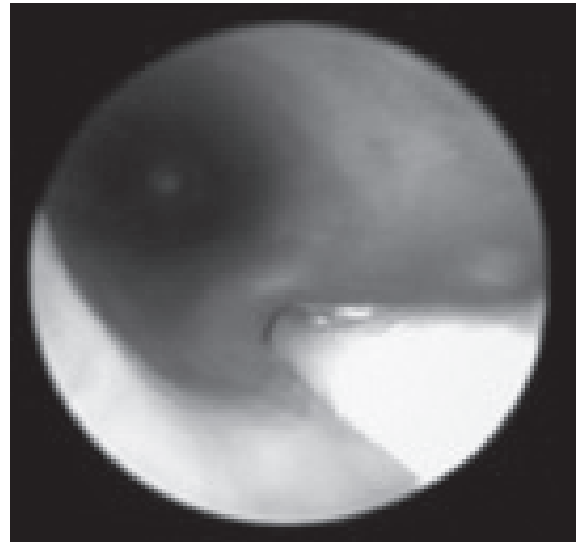


Resim 1. Hastanın son yatışında akciğer grafisinde sağ üstte pnomonik infiltrasyon ve midede gazeöz dilatasyon izlenmektedir.

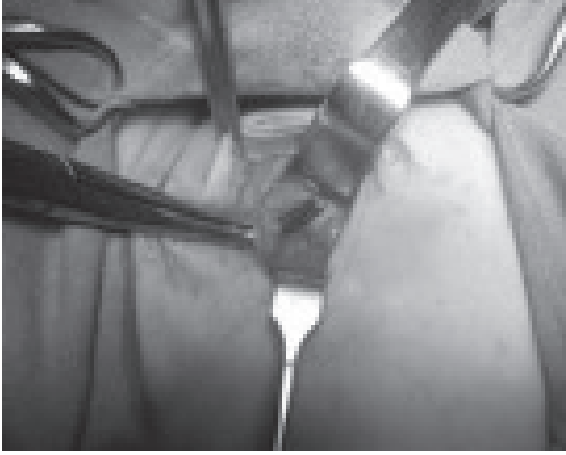
Hastanın öyküsünde, preeklampatik 30 yaşındaki anenin ikinci gebeliğinden ikinci yaşayan olarak 33. haftada makat geliş nedeniyle Cesarian/Sectio ile 1790 g doğduğu öğrenildi. Bradikardi ve solunum sıkıntısı nedeniyle entübe halde yenidoğan yoğun bakım ünitesinde interne edilmişti. Yatışının ikinci günü ekstübe edilerek ventilatör desteği yapılmış; beşinci gün lomber ponksiyonla alınan BOS'nda bol lökosit olması ve genel durumunun bozulması üzerine antibiyotik başlanılmış, ancak BOS kültüründe üreme olmamıştı. Dört günlükken yapılan ekokardiografide saptanan Foramen Ovale, üç gün sonra yapılan kontrol ekokardiografide kapanmıştı. Yedi günlük iken, batin distansiyonu gelişmesi nedeniyle çekilen grafisinde bağırsaklarda gazeöz dilatasyon mevcuttu. Batin ve transfontanel ultrasonografisi normaldi. On beşinci gün kusmaya sekonder aspirasyonu olması ve akciğer grafisinde bilateral infiltrasyonu gelişme-

si nedeniyle entübe edilerek derin trakeal aspirasyon yapılmıştı. Yirmi iki günlük ve 28 günlük iken, kusma sonrası aspirasyon ve grafisinde sağ üstte infiltrasyonu mevcut olan hasta entübe edilmeden tedavi edilmişti. Yattığı süre içerisinde bir kez kan kültüründe Metisiline Dirençli Koagülaz Negatif Stafilokok üremesi olmuştu.

Elli üç günlük iken, biberonla beslenir halde önerilerle taburcu edilen hasta bir hafta sonra aspirasyon pnomonisi nedeniyle Çocuk Acil Kliniğinde yeniden interne edildi ve çocuk cerrahisi konsültasyonu istenildi. Oskültasyonda akciğer sesleri bilateral kaba olan hastada, genel anestezi altında yapılan rigid bronkoskopi ile trakea başlangıcından 2 cm aşağıda trakea arka duvarı sağ yanda görülen orifis tarzında lezyon, 3 french üreter kateteri ile kateterize edildi (Resim 2). Eşzamanlı hemen ardından yapılan rigid özofagoskopide, fistülden ilerletilen üreterkateteri ucunun özofagus ön yüzünden lümenine girdiği görüldü, distaldeki özofagus mukozası normal pembe görünümünde idi. Endoskopi işlemine son verilerek hasta entübe edildi, nazogastrik tüp (NGT) mideye yerleştirildi. Sağ servikalden 2 cm'lik cilt insizyonu ile fistüle ulaşıldı; yaklaşık 2 mm çapında 13-15 mm uzunluğunda ve "N tipinde" olduğu görülen trakeoözofageal fistül onarımı yapıldı (Resim 3). Postoperatif üçüncü gün oral beslenen hasta, beşinci gün taburcu edildi. Bir hafta sonra sağ üst pnomonik infiltrasyonu grafik olarak da tamamen düzelmişti. Bir ay sonraki poliklinik kontrolünde beslenme sırasında yakınması



Resim 2. Bronkoskopidetrakea üst arka duvarda 3 French üreterkateteri ile kateterize edilen fistül orifisi görülmektedir.



Resim 3. Servikal yolla operasyonda yaklaşık 2 mm x 13-15 mm uzunluğundaki “H tipindeki” trakeoözofageal fistül righth-tangle ile askıya alınmış görülmektedir.

yoktu, solunum sesleri doğaldı. Halen sorunsuz seyretmektedir.

TARTIŞMA

Oral beslenme sırasında solunum sıkıntısı, boğulma atakları, öksürük ve morarma olması izole TÖF olasılığını düşündürmelidir ^(1,3,7). Hasta NGT ile beslenildiğinde bu bulguların ortadan kalkması fistül şüphesini kuvvetle desteklemektedir ^(7,8). Hastanın yaşı ilerledikçe yineleyen akciğer enfeksiyonu, hışıltılı solunum, retrosternal ağrı, karın ağrısı, gelişme geriliği gibi nonspesifik bulgular da eklenebilir ⁽⁹⁾. Çocukluk ve erişkin dönemde ise öksürük, özellikle sıvı gıda sonrası gözlenir ⁽⁶⁾.

Her ne kadar geç tanı alsalar da izole TÖF’lü hastaların akciğer grafileri geçmişe yönelik olarak yeniden değerlendirildiğinde, özellikle sağ üst lobda yineleyen infiltrasyon ve atelettazi yanı sıra eşlik eden mide ve bağırsakta gazeöz dilatasyon, bağırsak dilatasyonuna sekonder diyafragmada yükseklik görülebilmektedir ⁽⁷⁾. Ender olarak özofagusta gazeöz distansiyon olabileceği de bildirilmiştir ^(6,7).

Sağ üstte infiltrasyon veya atelettazi ile beraber mide dilatasyonu görülen yenidoğanlarda özellikle oral beslenme ile beraber klinik bulguların kötüleşmesi nazogastrik tüple beslendiğinde klinik bulguların düzelmesi durumunda, TÖF olasılığı ilk akla gelmeli ve tanıya yönelik tetkiklerin planlanması gereklidir ⁽⁸⁾. Yenidoğan yoğun bakım ünitesinde yattığı dönemde dört kez kusma ve aspirasyon pnomonisi kliniği

geçiren hastamızda NGT ile beslenildiği dönemlerde aspirasyon pnomonisi bulguları hızla düzelmiştir, oral beslemeye geçildiği dönemlerde kusma ve aspirasyon pnomonisi bulguları yinelenmiştir. Yenidoğan yoğun bakım ünitesinde yattığı uzun süre NGT ile beslenen hasta oral beslenmeye geçildikten iki gün sonra taburcu edilmişti. Hastanın taburculuktan bir hafta sonra ağır aspirasyon pnomonisi bulguları ile yeniden başvurması bu kez izole fistül olasılığını düşündürmüştü ve çocuk cerrahisi konsültasyonunu gündeme getirmişti. Olgumuzun ikinci yatışında babyg’da sağ üst lob pnomonik infiltrasyonu ve dilate mide bağırsak ansları mevcuttu. Öyküsünde yoğun bakım ünitesinde 53 günlük uzun yatış döneminde oral beslenme ve kusma sonrası gelişen aspirasyon pnomonileri ataklarının bulunması nedeniyle hastada ilk akla gelen öntanı izole TÖF olmuştur. Sonuç olarak, önceki grafileri değerlendirildiğinde oral beslenme dönemlerinde kusma ataklarına sekonder akciğerde sağ üstte veya yaygın infiltrasyonlarının gelişmesi ve aynı zamanda bu grafilerde mide dilatasyonlarının olması ön tanıyı kuvvetle desteklemiştir.

Yenidoğan ya da infant döneminde en sık yanığı bu hastalarda semptomlarının GÖR’den kaynaklandığının düşünülmesidir ⁽⁷⁾. Olgumuza da kusma semptomunun ön planda olması nedeniyle öncelikle GÖR tanısı konulmuş, antireflü tedavisi verilmiştir. İzole TÖF hastalarında da aspirasyon pnomonisi bulgularının ön planda olması nedeniyle ilk öntanı genellikle GÖR olmaktadır. Yenidoğanların fizyolojik GÖR dönemi kabul edilen 1,5-3 ay arasındaki dönemde reflüye karşı alınan önlemler ve medikasyona yanıt vermeyen olgularda; TÖF tanılanması genellikle üçüncü aydan sonra olabilmektedir. Literatür incelendiğinde ise çocuk olguların tanılanması 2,5 ay-5,9 yıl arasında değişmektedir ⁽²⁾.

Son yıllarda yoğun bakım olanaklarının artması, erken doğum sonucu prematürelere artması nedeniyle yoğun bakımlarda uzun süreli yatan olgularda oral beslenmeye ilişkili solunum sıkıntısı gözlenmesi durumunda TÖF olasılığı ilk gündeme gelmektedir. Dolayısıyla son yıllarda yenidoğanlarda ve erken infant döneminde giderek artan oranlarda izole TÖF’ler bildirilmektedir ⁽²⁾.

Çocukluk çağında TÖF’ü cerrahi olarak onarılmış olan hastalarda, ameliyat sonrası en sık karşılaşılan

komplikasyon, trakeanın kıkırdak halkalarının bozulması ve membranöz kısmındaki artış nedeniyle ortaya çıkan trakeomalazidir ^(4,10). Trakeomalazilerin TÖF'den ayırt edilmesi zordur, bu olgularda bronkoskopi yapılması tanıda yardımcı olmaktadır ⁽¹⁰⁾.

Yıllarca reaktif hava yolu tedavisi alan bazı çocuk veya erişkinlerin ise alerji parametrelerinin normal olduğunun raporlanması, izole TÖF'lü hastaların öntanılarının pek çok hastalıklarla karışabileceğinin bir göstergesidir ⁽³⁾. İlerleyen yaşlarda izole TÖF'te tipik aspirasyon bulguları olmayabilir. Gelişme geriliği ve karın ağrısı nedeniyle gastrik ülser öntanısıyla 4 yaşındaki bir hastada yapılan özofagus mide duodenum pasaj grafisi esnasında TÖF tanısı konulabilmiştir ⁽⁹⁾. Hemoptizili 31 yaşındaki hastada yapılan özofagogramda tümörden şüphelenilmiş endoskopiyle izole TÖF saptanmıştır ⁽⁶⁾.

TÖF tanısı klasik sineözofagogram veya tüp özofagogram ile yapılabilmektedir ^(3,7). Her iki tetkik de değerlidir, ancak hiçbirisi yanılmaz değildir. Fistülün sineözofagogram ile gösterilememe olasılığı yanı sıra sineözofagogram sırasında opakt maddenin fistülden aspirasyon riski yüksektir ⁽⁷⁾. Sineözofagogram, opakt maddenin aspirasyonu nedeniyle hastaya şimik pnomoni, akciğer hasarı ve acil resusitasyon gereksinimi gibi ek yükler katması yanı sıra skopi sırasında hasta, yakını ve filmi çeken personelin yüksek doz radyasyona maruz kalmasına neden olmaktadır ⁽²⁾. Tüp özofagogramın da yanlış negatif olasılığına karşın video kayıdı önerilmiştir ^(3,7). Özofagogramda fistül gösterilemeyen olgularda, TÖF olasılığı kuvvetle olası ise özofagogramın tekrarlanması önerenler olduğu gibi, radyasyon riski nedeniyle doğrudan bronkoskopi yapılmasını önerenler de mevcuttur ⁽⁷⁾. Bronkoskopi sırasında fistülün görülmesi kateterize edilmesini ve aynı seansta fistülün bağlanmasını da sağlamaktadır ^(2,3).

TÖF'ün kesin tanısı bronkoskopi ile konulur ⁽²⁾. Fleksibl ve rijit bronkoskopi üst ve alt hava yolları yapısal anomalilerin tespiti ve ameliyat planlanması için de çok değerli araştırmalardır ^(6,7). Özofagus atrezisiyle birlikte görülen TÖF'de fistülün lokalizasyonu carinaya yakın olur, ancak izole TÖF'de ise karakteristik olarak üst trakea seviyesindedir ⁽³⁾. İzole TÖF, çoğunlukla trakea arka duvarında ikinci torakal vertebra seviyesinde lokalizedir ve çapı küçüktür ⁽³⁾. Yenidoğan döneminde ve küçük çocuklarda proksimal trakea du-

varının bazı katlantıları sayesinde kolayca gözden kaçabilir ⁽³⁾. Çocuğun yaşı büyüdükçe trakea ve mukoza düzleşir ve fistül orifis çapı bir miktar genişler, büyük çocuklarda ise daha kolay görülebilir ⁽³⁾.

Son günlerde izole TÖF tanısında radyonüklid görüntülenmeler başarıyla raporlanmıştır ancak bu yöntemde akciğere aspire edilmiş radyonüklid madde varlığı TÖF veya GÖR'ye işaret eder ancak birbirinden kesin ayırıcı tanısı yapılmaz ⁽³⁾.

Çalışmamızda, hastamızın prematür yenidoğan olması, daha önce iki kez ciddi pnomoni geçirmiş olması, iki aylık olmasına rağmen, henüz prematüriteliğinin yeni dolmuş bulunması, nazogastrik sonda ile beslenme dönemlerinde trakeoözofageal semptomlarının ve aspirasyon pnomonisi bulgularının düzelmesi, uzun yoğun bakım yatış döneminde akciğer grafilerinde aspirasyona ait infiltrasyonlar yanı sıra dilate midenin izlenmesi öntanımızı TÖF olarak kuvvetlendirmiştir. Aynı zamanda derin trakeal aspirasyona da olanak vermesi nedeniyle yüksek riskli aspirasyon ve şimik pnomonisi nedeniyle sineözofagogram yerine bronkoskopi ve özofagoskopi yapılmasına karar verilmiştir. Böylelikle bronkoskopi yapılması; fistülün lokalizasyonunun tespit edilmesine, kateterize edilmesine ve aynı seansta servikal yoldan cerrahi olarak fistülün bağlanmasına da olanak sağlamıştır.

Yenidoğan döneminde gözlenen semptomların klinisyen açısından değerlendirilmesi daha berrak olurken, tanı koyma süresi uzadıkça hastalığın ön tanılarının artması nedeniyle aynı berraklıkta olmadığı düşünülmektedir. Öykü iyi sorgulanmazsa ise tanının atlanmasına, tedaviye anlamlı yanıt alamaması hastanın farklı merkezlere götürülmesine ve hastanın farklı klinisyenler tarafından değerlendirilmesine neden olabilecektir. Taburculuk sonrası yine kendi merkezimize başvurması ve aynı yenidoğan ve pediatri ekibi tarafından değerlendirilmesi nedeniyle, prematüre olmasına rağmen, hasta iki aylık iken TÖF öntanısıyla çocuk cerrahisine danışılmıştır. Her ne kadar hastamızda iki ay gibi oldukça erken dönemde TÖF tanılması yapılmış olmasına rağmen, öyküsünde yenidoğan yoğun bakım ünitesinde uzun yatış süresince pek çok aspirasyon pnomonisi ataklarına rağmen, konsülte edilmemesi aynı zamanda bir paradoks idi. GÖR öntanısı yapılması nedeniyle hastamızda tanı konulmasında gecikmeye neden olmuştu.

Sonuç olarak, günümüzde gerek tanı ve tedaviye yönelik olarak hastane alt yapı ve donanımının artırılması, gerekse hizmet içi eğitimler ile yoğun bakım ekibinin izole TÖF tanı ve ayırıcı tanı açısından farkındalığının artırılması, yineleyen sağ üst lob infiltrasyonu veya aspirasyonpnomoni bulguları oral beslenme dönemlerinde artan hastalarda daha erken izole TÖF tanısı konulabilecektir.

KAYNAKLAR

1. Sundar B, Guiney EJ, O'Donnell B. Congenital H-type tracheo-oesophageal fistula. *Archives of Disease in Childhood* 1975;50:862. <https://doi.org/10.1136/adc.50.11.862>
2. Riazulhaq M, Elhassan E. Early recognition of H-Type tracheoesophageal fistula. *APSP J Case Rep* 2012;3:4.
3. Schutter ID, Vermeulen F, Wachter ED, Ernst C, Malfroot A. Isolated tracheoesophageal fistula in a 10-year-old girl. *Eur J Pediatr* 2007;166:911-4. <https://doi.org/10.1007/s00431-006-0336-4>
4. Okutan O, Çalışkan T, Kartaloğlu Z, Çiftçi F, İlvan A. Erişkin yaşa ulaşmış asemptomatik konjenital trakeo-özofageal fistül: Olgu Sunumu. *Solumum* 2006;8(2):71-4.
5. Stavroulias DI, Ampollini L, Carbognani P, Rusca M. Late presentation of congenital H-type tracheoesophageal fistula in an immunocompromised patient. *Eur J Cardiothorac Surg* 2011;40(2):98-100.
6. Hajjar WM, Iftikhar A, Nassar SAA, and Rahal SM. Congenital tracheoesophageal fistula: A rare and late presentation in adult patient. *Ann Thorac Med* 2012;7(1):48-50. <https://doi.org/10.4103/1817-1737.91553>
7. Crabbe DCG. Isolated tracheo-oesophageal fistula. *Pediatric Respiratory Reviews* 2003;4:74-8. [https://doi.org/10.1016/S1526-0542\(02\)00274-9](https://doi.org/10.1016/S1526-0542(02)00274-9)
8. Tarcan AI, Gürakan B, Arda S, Boybat F. Congenital H-type fistula: delayed diagnosis in a preterm infant. *J Matern Fetal Neonatal Med* 2003;13(4):279-80. <https://doi.org/10.1080/jmf.13.4.279.280>
9. Oğuzkurt L, Balkancı, Ariyürek M. Congenital tracheoesophageal fistula with out atresia: an incidental finding. *Türk J Pediatr* 1997;39(2):285-7.
10. Doğru D. Çocukluktan erişkinliğe akciğer hastalıkları. *Türk Toraks Dergisi* 2004;5(1):1-7.