

OLGU SUNUMLARI

GÖĐÜS DUVARI TUTULUMLU DEV KİSTİK HİGROMA: İKİ OLGU

GIGANT CYSTIC HYGROMA ON CHEST WALL: A REPORT OF TWO CASES

Özmert ÖZDEMİR
İlknur KILIÇ
Kazım KÜÇÜKTAŞCI
Uğur KOLTUKSUZ
Bircan SAVRAN

ÖZET

Kliniđimizde, göđüs duvarı tutulumlu, kistik higromalı iki yenidođan olguda kistler cerrahi olarak tümüyle çıkarılmıřtır. Herhangi bir komplikasyon ile karřılařılmamıřtır. Bu tür kistlerin atipik yerleřimli ve erken cerrahi giriřimle iyi prognozlu oldukları dikkate alınmalıdır.

Anahtar Sözcükler: Göđüs duvarı, Kistik higroma, Lenfanjiyoma,

SUMMARY

The complete surgical resection of the cyst was performed in two patients with cystic hygroma (CH) on chest wall in early postnatale life. No complications developed in these patients after surgery. The atypical locations of cystic hygroma and its good prognosis after early surgical resection has been stressed..

Key Words: Chest wall, Cystic hygroma, Lymphangioma

Bu yazı Paris'te yapılan UNEKO –16;2008 Nisan Kongresi'nde poster olarak sunulmuřtur.

Pediyatri Anabilim Dalı
(Prof. Dr. İ Kılıç, Uz. Dr. Ö M A Özdemir, Dr. K Küçüktaşcı)
Çocuk Cerrahisi AD
(Doç. Dr. U Koltuksuz, Dr. B Savran)
Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi / DENİZLİ
Yazıřma: Uz. Dr. Ö Özdemir

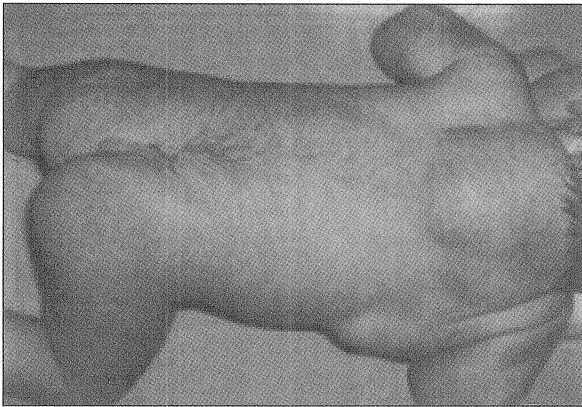
GİRİŞ

Kistik higroma (KH) lenfatik kanalların anormal gelişiminden kaynaklanan nadir görülen konjenital bir bozukluktur. Kistik yapılar %75 olguda boynun yan tarafında, %20 koltuk altında, %5 mediastinum, retroperitoneal bölge ve daha nadir olarak da göğüs duvarında yerleşim gösterebilir (1-2). İzole olabileceği gibi özellikle kromozomal anormalliklerle birlikteliği sık olup, non-imün hidrops ve oligohidramniyoz KH'ya eşlik edebilir (3-5).

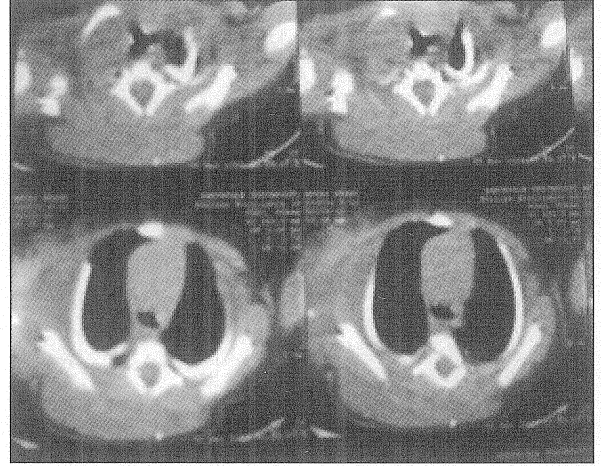
Burada prenatal ultrasonografi (US) ile tanısı konulan ve göğüs duvarını tutan izole dev kistik higromalı iki olgu, literatür eşliğinde tartışıldı.

OLGU 1

23 yaşındaki annenin 1. gebeliğinden 3800 gr ağırlığında sezaryen ile doğan kız bebeğin (DA, klinik protokol no: 256581) hemen doğum sonrası fizik bakışında interskapuler bölgeden sağ koltuk altına ve göğse uzanan en büyüğü 13x12 cm'lik düzgün sınırlı, flüktüasyon veren, lobüle kistik lezyon saptandı (Resim 1). Diğer sistem bulguları olağandı. Prenatal US'de boyunda deri ve deri altı dokuda, yukarıda oksipital bölgeye, aşağıda torakal bölgeye kadar uzanan, çoğul, septalı kistik görünüm saptandı. Postnatal US'de sağ omuz, koltuk altı ve sırt bölgesini içine alan, sırtta sol omuza kadar uzanan, göğüs ön kısmında sağ göğsü hemen hemen kaplayan, sınırları net seçilemeyen, deri altında izlenen, yer yer kistik septalı oluşumlar ve solid görünümünden meydana gelen, yumuşak doku kitlesi izlendi. Toraksın bilgisayarlı tomografi (BT)'sinde toraks sağ ve arka



Resim 1. İnterskapuler bölgeden sağ koltuk altına ve göğse uzanan en büyüğü 13x12 cm'lik düzgün sınırlı, flüktüasyon veren, lobüle kistik kitle.



Resim 2. Toraks BT'de sağ ve arka duvarda düşük dansiteli 2 adet kistik kitle lezyonu.

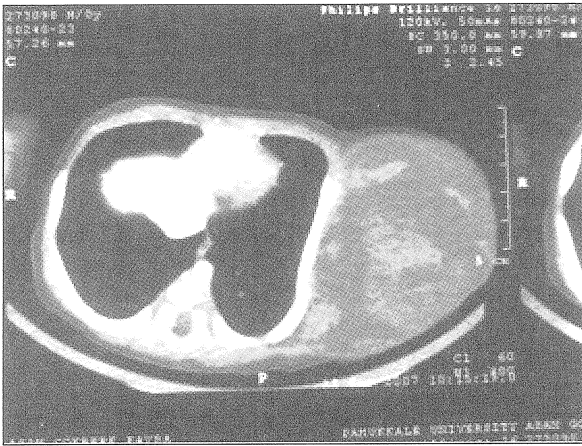
duvarında, düşük dansiteli 2 adet kistik kitle lezyonu, dansite ölçümlerinde komplike sıvı içerikli olduğu görüldü (Resim 2). Ekokardiyografi (EKO)'de 2 mm'lik açık foramen ovale (FO) saptandı. Kromozom analizi 46, XX, inv (9) (p11;q13) olarak bulundu. Anne ve babanın kromozom analiz sonucu da hasta ile aynı bulundu. Diğer laboratuvar incelemeleri normaldi. Postnatal 15. günde (04.09.2007) çocuk cerrahisi tarafından total kist eksizyonu yapıldı. Patoloji raporu (protokol no: 3650H07) kistik lenfanjiyom ile uyumlu olarak bildirildi.

OLGU 2

27 yaşındaki annenin 2. gebeliğinden ilk yaşayan olarak sezaryen ile miadında 3870 gr ağırlığında olarak doğan erkek bebeğin (GKA, klinik protokol no: 273098), fizik bakışında sol koltuk altında 10x8 cm boyutunda, düzgün sınırlı, yumuşak kitle saptandı (Resim 3). Diğer sistem bulguları, rutin biyokimyasal tetkikleri ve hemogramı normaldi. Prenatal US'de sol koltuk altında 25x20 mm boyutlarında septalı kistik oluşum izlendi. Prenatal sitogenetik incelemesi normaldi. Postnatal US'de sol koltuk altında 10x6 cm boyutunda kistik-solid komponentleri olan lezyon izlendi. Toraks BT'de sol klaviküler ve aksiler bölgeden toraks yan duvarı boyunca uzanım gösteren, septasyonları ve solid komponentleri olan kistik kitle lezyonu saptandı (Resim 4). EKO'da 2 mm'lik açık FO saptanan olgunun, kromozom analizi 46, XY olarak normal bulundu. Postnatal 4. gününde (11.09.2007) çocuk cerrahisi tarafından total kist eksizyonu yapılan olgunun, patoloji raporu (protokol no: 3776H07) kistik lenfanjiyom ile uyumlu olarak bildirildi.



Resim 3. Sol koltuk altında 10x6 cm boyutunda, düzgün sınırlı, yumuşak kitle.



Resim 4. Toraks BT'de sol klaviküler ve aksiler bölgeden toraks yan duvarı boyunca uzanım gösteren septasyonları ve solid komponenti olan kistik kitle lezyonu.

TARTIŞMA

Fetusta 5-6. gebelik haftasında görülmeye başlayan lenfatik sistemin santral sistem ile birleşmemesi sonucu oluşan, lenfatik kesenin venöz sistemle (internal juguler ven) birleşmesi sonucu KH oluşmaktadır. Bu durum KH'ların fetal lenfatik keselerin olduğu hep aynı bölgede yerleşim gösterme nedenini açıklamaktadır (2,6). Lezyonlar histolojik olarak damar endoteli ile döşeli geniş, multiloküler kistlerle karakterizedir (7). 3 grupta sınıflandırılır: 1. Lenfanjiyoma simpleks 2. Kavernöz lenfanjiyom 3. Kistik lenfanjiyom veya kistik higroma (8). Her iki olguya da patolojik olarak kistik lenfanjiyom tanısı konuldu.

KH sonografik olarak değişik kalınlıkta septalar içeren multiloküler kistik kitleler şeklinde izlenirler (9,10). Tomografik inceleme veya manyetik rezonans görün-

tüleme KH'nın preoperatif tanısında ve çevre dokuyla ilişkisinin belirlenmesinde kullanılır (8,11-13). Gebeliğin 10-23. haftaları arasında transvajinal US ile antenatal tanısı konulabilen KH'lı olguların %43-75'inde non-immün hidrops, yaklaşık 2/3'ünde oligohidramniyoz görülebilir

(3,14). Hidrops ve oligohidramniyoz saptanmayan her iki olguda prenatal ve postnatal US ile septalı kistik oluşumlar gösterilmiş, postnatal tomografik inceleme ile toraks duvarı tutulumlu dev KH tanısı konulmuştur.

Her iki olgumuzda da olduğu gibi KH'luların %50-65'i doğumda kistik lezyonun varlığıyla tanı alırken, semptomların kitlenin tutuluş yeri ve şekline göre değişebilmesi %80-90 olguda tanının 2 yaşına kadar gecikebilmesine neden olabilir (4,13). Olgularımıza prenatal US ile tanı konmakla birlikte, doğumda kitle varlığı saptanmıştır.

KH tek başına olabileceği gibi, %25-70 olgunun Turner sendromu, Down sendromu ve trizomiler gibi bazı karyotip anomalileri ile birlikte olabileceği bildirilmiştir (14-16). Her iki olgumuzda da kromozom analizi sonucu normal bulundu.

Ayırıcı tanıda lipoma, hemanjioma, brakiyal kist, tiroglossal kist, dermoid kist, timik kist, laringesel, tiroid kitleleri, neoplazi, retrofaringeal abse, enfeksiyona bağlı lenfadenopati yer alır (2,5,17).

KH'ların kendiliğinden yok olabileceği bildirilmekle birlikte, kitlenin yerleşim yerine göre olgularımızda da olduğu gibi, cerrahi girişim ile lezyonun çıkarılmasının en uygun seçenek olduğu, ancak kistik lezyonun çevre dokulara invazyonu sonucu cerrahi çıkarımın zor olduğu ve dolayısıyla %60 olguda ise ancak kısmen çıkarılabileceği bildirilmektedir (15,18). Tedavide radyoterapi, aspirasyon, sklerozan madde enjeksiyonu (OKT-432, bleomisin) ve CO₂ lazer gibi cerrahi olmayan yöntemler de kullanılmaktadır (2,3, 13,17,19).

Sonuç olarak, izole ve göğüs duvarı tutulumlu dev KH'lı olgular, atipik yerleşimli olmaları ve erken cerrahi girişim gerektirdiği için sunulmuştur.

KAYNAKLAR

1. Tran Ngoc N, Tran Xuan N. Cystic hygroma in children: a report of 126 cases. J Pediatr Surg 1974; 9: 191-5.
2. Ardenghy M, Miura Y, Kovach R, Hochberg J. Cystic hygroma of the chest wall: a rare condition. Ann Plast Surg 1996; 37: 211-3.

3. Galagher PG, Mahoney MJ, Gosche JR. Cystic hygroma in the fetus and newborn. *Semin Perinatol* 1999; 23: 341-56.
4. Orvidas LJ, Kasperbauer JL. Pediatric lymphangioma of the head and neck. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2000; 109: 411-21.
5. Muensterer OJ. Index of suspicion. Case 2: cystic hygroma. *Pediatrics in Review* 2000; 21: 141-3.
6. Fisher R, Partington A, Dykes E. Cystic hygroma: comparison between prenatal and postnatal diagnosis. *J Pediatr Surg* 1996; 31: 473-6.
7. Charabi B, Bretlau P, Bille M, Holmelund M. Cystic hygroma of head and neck – a long-term follow-up of 44 cases. *Acta Otolaryngol* 2000; 543: 248-50.
8. Rossi G, Lannicelli E, Almberger M, Innocenzi D, David V. Cystic lymphangioma of the upper extremity: US and MRI correlation. *Eur Radiol* 2005; 15: 400-02.
9. Rani DV, Srilakshmi R, Malathi S, Raghupathy V, Bagdi RK. Unusual presentation of a retroperitoneal lymphangioma. *Indian J Pediatr* 2006; 73: 617-8.
10. Onur MR, Özel K, Demir F, Özdemir H. Dev kistik higroma: US ve MRG özellikleri. *Fırat Üniv. Sađ. Bil. Derg* 2007; 21: 141-4.
11. Sheth S, Nussbaum AR, Hutchins GM, Sanders RC. Cystic hygromas in children: sonographic-pathologic correlation. *Radiology* 1987; 162: 821-4.
12. Sermon A, Gruwez JA, Lateur L, De Wever L. The importance of magnetic resonance imaging in the diagnosis and treatment of diffuse lymphangioma. *Acta Chir Belg* 1999; 99: 230-5.
13. Fonkalsrud EW. Congenital malformations of the lymphatic system. *Semin Pediatr Surg* 1994; 3: 62- 9.
14. Musone R, Bonafiglia R, Menditto A, Paccone M, Cassese E, Russo G, et al. Fetuses with cystic hygroma. A retrospective study. *Panminerva Med* 2000; 42: 39-43.
15. Burezq H, Williams B, Chitte SA. Management of cystic hygromas: 30 year experience. *J Craniofacial Surg* 2006; 17: 815-8.
16. Descamps P, Jourdain O, Paillet C, Toutain A, Guichet A, Pourcelot D, et al. Etiology, prognosis and management of nuchal cystic hygroma: 25 new cases and literature review. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 1997; 71: 3-10.
17. Yildirim E, Dural K, Kaplan T, Sakinci U. Cystic lymphangioma: report of two atypical cases. *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2004; 3: 63-5.
18. Ameh EA, Nmadu PT. Cervical cystic hygroma: pre-, intra-, and post-operative morbidity and mortality in Zaria, Nigeria. *Pediatr Surg Int* 2001; 17: 342-3.
19. Ogita S, Tsuto T, Tokiwa K, Takahashi T. Intracystic injection of OK-432: a new sclerosing therapy for cystic hygroma in children. *Br J Surg* 1987; 74: 690-1.

İLETİŞİM

Uz. Dr. Özmert ÖZDEMİR
Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi Pediatri AD,
Doktorlar cad. No:42 Pk: 20100 / DENİZLİ
Tel: 0 258 241 00 34 / 127
E-posta: drozmert@gmail.com

Başvuru : 23.3.08
Kabul : 17.6.08