

DOI: 10.4274/tpa.721



Çocukluk çağında pulmoner hidatik kist rüptürü: Başvuru şekli, tanı ve tedavi yöntemleri *Pulmonary hydatid cyst rupture in childhood: Presentation, diagnosis and treatment strategies*

Tunç Özdemir, Ahmet Arıkan

Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Cerrahisi Kliniği, İzmir, Türkiye

Özet

Amaç: Pulmoner hidatik kist rüptürü, ender görülen ancak ciddi bir komplikasyondur. Bazen öksürük ve ağızdan sıvı gelmesi yakınmaları ile kliniğe yansiyabilirken, bazen de anafilaktik şok hatta boğulma gibi ağır tablolar da görülebilir. Çalışmamızda rüptüre pulmoner hidatik kistli olgular geriye dönük olarak incelenmiş, tedaviye yönelik medikal ve cerrahi seçenekler tartışılmıştır.

Gereç ve Yöntem: Ocak 1999 ve Haziran 2012 tarihleri arasında hidatik kist saptanan 956 hastaya cerrahi tedavi uygulanmıştır. Bu hasta grubundan intraplevral/intrabronşiyal rüptür saptanan 110 hasta geriye dönük olarak değerlendirilmiştir. Hastaların demografik özellikleri, kliniğe yansımaları şekilleri, uygulanan tedavi yöntemi ve komplikasyonlar kaydedilmiş ve tartışılmıştır.

Bulgular: Pulmoner hidatik kistli olgularda rüptür olması durumunda en çok görülen bulgular, öksürük-balgam (n=92) ve şiddetli hidroptizistir (kist içeriğinin solunum yoluyla boşalması) (n=47). Yukarı yerleşimli kistler rüptüre daha yatkın bulunmuştur. İki hasta boğulma ile başvurmuştur. Dokuz hastada (%9), kardiyopulmoner yeniden canlandırma ve mekanik ventilasyon gerektirecek derecede ağır anafilaktik reaksiyon gelişmiştir. On üç hastada hafif alerjik reaksiyon görülmüştür. Tüm olgularda cerrahi tedavi seçeneği basit kistostomi ve drenaj olmuştur.

Çıkarımlar: Çocuklarda hidroptizis ile birlikte alerjik reaksiyon görülmesi rüptüre olmuş pulmoner hidatik kist düşündürmelidir. Tüm torakal hidatik kistler komplikasyon gelişimini engellemek için mümkün olan en kısa zamanda ameliyat edilmelidirler. Cerrahi girişim mümkün olduğunca doku koruyucu nitelikte olmalıdır. Torakotomi sırasında basit kistostomi-drenaj yeterlidir. Benzimidazol türevlerinin kullanılması ameliyat sonrası dönemde yinelenmelerin önlenmesi için şarttır. (*Türk Ped Arş 2013; 48: 323-6*)

Anahtar sözcükler: Hidatik kist, çocuk, komplikasyon

Summary

Aim: Rupture of pulmonary hydatid cyst is rare, yet very serious complication. The patients may be presented with cough and hydroptysis or may be presented with anaphylaxis and suffocation. Pediatric patients with ruptured pulmonary hydatid cyst were evaluated retrospectively, surgical and medical options yielding to treatment are discussed.

Material and Method: Between January 1999 and June 2012 a total of 956 patients with hydatid cyst had undergone surgical treatment. One hundred and ten patients with intrapleural/intrabronchial hydatid cyst rupture, were evaluated retrospectively. Demographics, clinical presentation, treatment strategies and complications were recorded and discussed.

Results: Ruptured hydatid cysts are manifested as cough-sputum (n=92), massive hydroptysis (expectoration of cyst content) (n=47) in patients with pulmonary cysts. It was shown that superiorly localized cysts in lung were more likely to perforate. Two patients with pulmonary ruptured hydatid cyst were admitted with suffocation. Severe anaphylactic reaction requiring cardiopulmonary resuscitation and mechanic ventilation was encountered in 9 patients (9%). Mild allergic reactions were observed in 13 patients. Simple cystostomy-drainage was the treatment of choice.

Conclusions: Hydroptysis accompanying with allergic reaction must yield the physician to the diagnosis of ruptured pulmonary hydatid cyst in pediatric patients. All thoracic hydatid cysts should be operated on as soon as they are diagnosed in order to avoid complications, and surgery should be as conservative as possible. Simple cystostomy-drainage is adequate during thoracotomy. Benzimidazole should be administered postoperatively to avoid recurrences. (*Türk Arch Ped 2013; 48: 323-6*)

Key words: Hydatid cyst, pediatrics, complications

Yazışma Adresi/Address for Correspondence: Dr. Tunç Özdemir, Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Cerrahisi Kliniği, İzmir, Türkiye

E-posta: ozdemirtunc@yahoo.com **Geliş Tarihi/Received:** 14.01.2013 **Kabul Tarihi/Accepted:** 03.09.2013

Türk Pediatri Arşivi Dergisi, Galenos Yayınevi tarafından basılmıştır. / Turkish Archives of Pediatrics, published by Galenos Publishing

Giriş

Hidatik kist (HK) tipik olarak bulgusuz seyrederek ve sıklıkla başka bir hastalığın araştırılması sırasında tanı alır. Tedavi edilmezse HK gittikçe büyür ve yerine bağlı olarak bronkopulmoner sisteme veya plevraya fistülize olur. Bronş ya da plevra içine hidatik kist rüptürü ender ancak önemli bir komplikasyondur.

Yeri ne olursa olsun hidatik hastalığın diğer bulguları kist rüptürü sonrasında antijenik gerecin salımı ve ikincil immünolojik cevaptır. İntraplevral rüptürler sonrasında sistemik anafilaktik yanıt oranı %1 civarında bildirilmiştir (1,2). Hidatik kist rüptürü şiddetli alerjik, tıkaçıcı veya enfektif sekele yol açabilir. Kist rüptürüne bağlı anafilaksi hayatı tehdit edici bir komplikasyon haline gelebilir.

Bronş ya da plevra içine HK rüptürü acil cerrahi girişim gerektirir. Cerrahi tedavi başlıca tedavi yöntemi ise de, koruyucu tedavi ve yöntemler arasında görüş birliği sağlanamamıştır (3).

Benzimidazol türevlerinin kullanımı ameliyat edilemeyecek durumdaki hastalarda yaygın olsa da, ameliyat sonrası dönemde yinelemenin önlenmesi amacı ile "adjuvan" kullanımı daha yaygındır. Rüptür/fistülizasyon görülen hastalarda ameliyat öncesi 10-15 gün kullanım düzenli uygulamaya girmiştir. Ancak aciliyeti olan durumlarda ameliyat öncesi bir süre ilaç kullanımı mümkün olamamaktadır.

Hasta grubumuz çocuk yaş grubunda rüptüre pulmoner HK açısından literatürdeki en yüksek sayıya sahiptir. Bu bildiriye, 13 yıllık dönemde rüptüre pulmoner HK'li çocuk hastalara uyguladığımız tedavi yöntemleri tartışılmıştır.

Gereç ve Yöntem

Ocak 1999 ile Haziran 2012 tarihleri arasında kliniğimizde pulmoner HK nedeniyle tedavi edilmiş 956 hastanın tıbbi kayıtları geriye dönük olarak incelenmiştir. Bu zaman döneminde, Bronş ya da plevra içine HK rüptürü saptanan ve cerrahi tedavi uygulanmış 110 hasta çalışmaya dahil edilmiştir.

Her hastaya tam kan sayımı, kan gazı, serum biyokimyası ve ekinokok indirekt hemaglütinasyon testleri analizi yapılmıştır. Ekinokok hemaglütinasyon testinin 1/330'dan yüksek titre değeri pozitif olarak kabul edilmiştir.

Hastaların ameliyat öncesi değerlendirmesinde, tam fizik muayene sonrasında, hastaların tümüne akciğer filmi, göğüs ve üst karın bilgisayarlı tomografisi (BT) çekilmiştir. Eşlik eden karın HK olasılığı nedeniyle tüm hastalara karın ultrasonografisi yapılmıştır.

Pnömotoraks ve/veya plevral sıvı saptanan hastalara öncelikle göğüs tüpü takılmıştır. Hastalara göğüs kafesinin açılması ile cerrahi olarak basit kistotomi-direnaj yöntemi uygulanmıştır. İşlevsel akciğer dokusu ile yakın ilişkisi yok ise kist duvarları da çıkarılmıştır. Göğüs kafesinin açılması

sırasında görülebilen bronşiyal fistüller kapatılmıştır. Eğer daha önce yapılmamışsa ameliyat sürecinde kostalar arasına tüp yerleştirilmiş, kapalı su altı direnaj sistemine bağlanmış, bu tüp ameliyattan birkaç gün sonra çekilmiştir.

Ameliyatın hemen öncesinde başlanan benzimidazol türevleri ameliyat sonrası yinelemeyi önleme amacıyla devam edilmiştir.

Hastaların yaşı, cinsiyeti, başlangıçtaki yakınmaları, fizik muayene bulguları, kist özellikleri, görüntüleme sonuçları, rüptüre eğilim yaratan unsurlar ve hastalık değerlendirilmiştir. Ameliyat sonrası ortalama izlem süresi 21 aydır (6-36 ay).

Bulgular

Hastaların ortalama yaşı 9,2 (4-14 y) yıldır. Erkek hasta sayısı 64 (%59) iken, kız hasta sayısı 46'dır (%41). Hastaneye başvuruya yol açan yakınmalar Tablo 1'de gösterilmiştir.

Öksürük ve balgam en yaygın belirtidir ve tanı açısından değeri düşüktür. En yaygın fizik bulgu ise, etkilenmiş hemitoraksta azalmış solunum sesleridir. Kırk yedi hastada, kistin hava yoluna rüptürünün en güçlü bulgusu olan şiddetli hidroptizis (kist içeriğinin öksürükle trakeadan boşalması) öyküsü vardır. Hiç bir hastada kist duvarı veya vezikül kistlerin ekspektorasyonu görülmemiştir. İki hasta acil servise kist içeriğinin aspirasyonu nedeniyle boğulma ve can çekişme tablosu ile getirilmiştir.

Kistin sadece hava yoluna açıldığı hastalarda pnömotoraks görülmemiştir. Bu hastalarda kist içindeki hava-sıvı seviyesi belirgin radyolojik görüntüdür. Hasta grubumuzda plevral boşluğa kist rüptürü olan 29 hastada plevral sıvı saptanmıştır. Yirmi hastada kist hem hava yoluna hem de plevral boşluğa açılmıştır. Hava yolu ve plevral boşluğa kist rüptürü olan 20 hastanın 17'sinde pnömotoraks saptanmıştır (tüm hastaların %15'i). Pnömotoraks ve/veya plevral sıvısı olan hastalara saptandıkları anda interkostal tüp direnaji uygulanmıştır. Tüp direnaji sonrasında bu hastalar ameliyat edilmişlerdir. Kostalar arası tüp direnaji ortalama yedi gün devam etmiştir (üç gün-üç hafta).

Tablo 1. Rüptüre pulmoner hidatik kiste genel yakınmalar

Yakınma	Hasta sayısı
Şiddetli hidroptizis	47
Öksürük-balgam	92
Dispne	46
Anafilaksi	9
Pnömotoraks	17
Plevral sıvı	29
Boğulma	2
Toplam	110

Alerjik tepkime 22 hastayı etkileyen (%20) yaygın bir bulgu olmuştur. Deri lezyonları (n:4) ve hafif laringeal ödem (n:9) ile belirgin hafif alerjik tepkimeler antihistaminik ve kortikosteroid uygulaması ile tedavi edilmiştir. Dokuz hastada (%8) kardiyopulmoner yeniden canlandırma ve mekanik ventilasyon gerektiren ağır anafilaktik tepkime gelişmiştir.

Düz akciğer grafisi ve BT'de tek "hava-sıvı seviyesi" içeren dev kistik kitle, hava yoluna HK rüptürü için tanısaldır (Şekil 1,2). Yine BT'de görülen "hava baloncuğu" görüntüsü hastalarımızın bir kısmında izlenmiştir (Şekil 3) (4).

Hastaların değerlendirilmeleri sırasında karın ultrasonografisi ile 25 hastada ek olarak karaciğer HK saptanmıştır (%23). Bu hastaların tümü daha sonra bu nedenle ameliyat edilmişlerdir.

Hastaların 15'i serolojik olarak negatiftir (%14).

Yaş, kist rüptürü için eğilim yaratan bir unsur olarak görülmemiştir ($p>0,05$). Ancak, yukarıda yerleşim, rüptür için daha aşağıda yerleşime göre daha anlamlı bir eğilim yaratan unsur olarak saptanmıştır. Büyük kistler (≥ 8 cm) rüptüre daha eğilimli bulunmuştur ($p<0,05$). Cinsiyetler arasında kist rüptürü açısından anlamlı bir fark görülmemiştir ($p=0,95$).

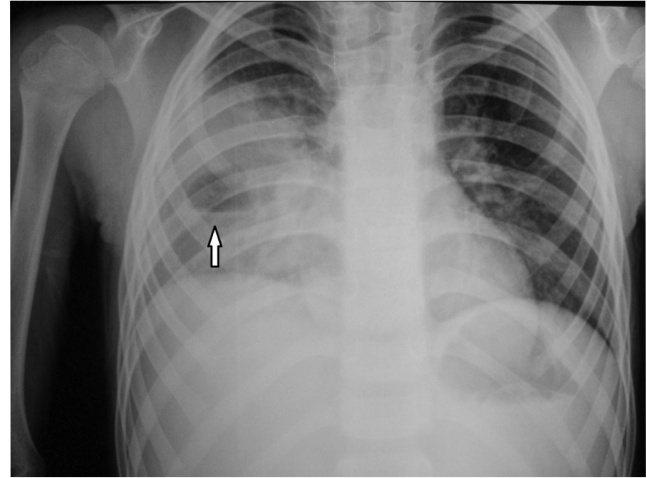
Tüm hastalara kistotomi-direnaj yöntemi uygulanmıştır. Görülebilen bronşiyal fistüller onarılmıştır. Kimyasal bronşiyal hasar riski nedeniyle rüptüre kistlerde skolisidal ajanlar kullanılmamıştır. Hastaların hiçbirinde işlev gören akciğer dokusu çıkarılmamıştır. Kapitonaj hiçbir hastaya uygulanmamıştır.

Dört hastada bronşiyal fistül nedeniyle, kostalar arasında tüp direnaji uzamıştır. Bu hastalarda fistül ortalama iki haftada kendiliğinden kapanmış, ek cerrahi girişim gerekmemiştir. Hiç bir hastada yara yeri enfeksiyonu görülmemiş, hiç bir hasta kaybedilmemiştir.

Tartışma

Hidatik kist %50-79 karaciğerde, %10-30 akciğerde ortaya çıkar. Kist rüptürü kendiliğinden olabildiği gibi, travmaya bağlı da olabilir (5). Hidatik kist rüptüre olduğunda komplike kist olarak adlandırılır ve hastanın başvuru tablosu, delinmenin doğasına göre oldukça değişkendir (6). Ekinokokkal kistler her zaman rüptür ve anafilaktik tepkime riski taşır. Anafilaktik tepkinin yanında, ekinokokkal skolekslerin ve kız kistlerin sağlıklı viseraya dağılma riski de ortaya çıkar.

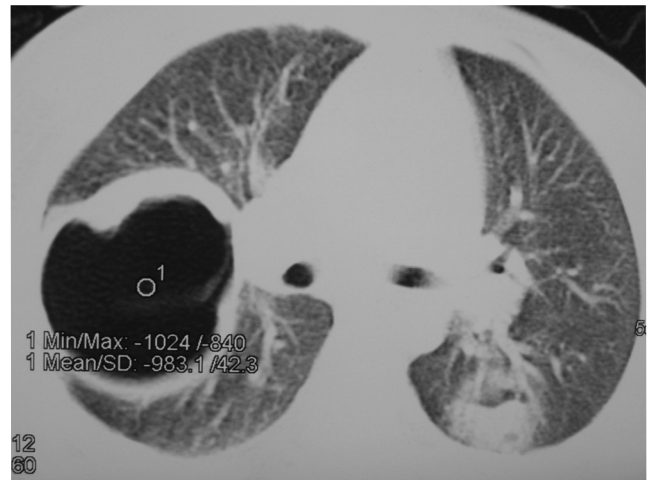
Her ne kadar tanı akciğer filmi ile konabilse de, bazen göğüs BT çekilmesi de gerekir. Bilgisayarlı tomografi, kistin iç yapısının değerlendirilmesinde ve tam yerinin belirlenmesinde gerekli olabilir (4). Negatif seroloji hidatik hastalığı tanısını dışlamaz (7). Özellikle akciğeri etkileyen kishidatikli olgularda, hastalar %3-40 oranında seronegatif olabilirler (8). Hasta grubumuzda 15 hasta da seronegatif olarak kliniğe yansımıştır.



Şekil 1. Rüptüre pulmoner hidatik kiste akciğer grafisi görüntüsü. Sağ hemitoraksta hava-sıvı seviyesi görülüyor



Şekil 2. Rüptüre pulmoner hidatik kiste BT görüntüsü



Şekil 3. Rüptüre pulmoner hidatik kiste "hava baloncuğu" görüntüsü

Alerjik yakınmalar ciltte, ürtiker veya maküler döküntüler şeklinde görülebilir. Hastada bazen de ciddi hayati tehdit edici bir durum olan anafilaksi de gelişebilir. Çalışmamızdaki dokuz hastada anafilaktik tepkime gelişmiş, 13 hastada ise hafif alerjik bulgular meydana gelmiştir.

Literatürde HK rüptürü için çeşitli oranlar belirtilmiştir (%2,4-6,2). Pulmoner HK olgularında %7,6 oranında da ampiyem gelişimi bildirilmiştir (6). Akciğer tepesinde yerleşmiş olan kistlerin daha hızlı büyüdüğü ve rüptüre daha eğilimli oldukları söylenebilir ($p<0,05$). Yine gösterilmiştir ki, 8 cm'nin üzerinde çapa sahip olan kistler bronş yada plevra içine rüptüre daha eğilimlidirler ($p<0,05$). Yaş ve cinsiyet ile HK rüptürü arasında anlamlı bir ilişki bulunamamıştır.

Hidatik hastalıkta, cerrahi tedavi birincil olarak tercih edilmesi gereken yöntemdir. Rüptüre kistlerde enükleasyon yapmak mümkün olmaz. Her ne kadar öncelikle parankim koruyucu yöntemler tercih edilse de, pulmoner HK'li olgularda büyük pulmoner rezeksiyonların gerekliliği hala tartışılmaktadır (9). Hasta grubumuzda, kistotomi-drenaj tekniği tüm hastalarda sorunsuz olarak uygulanabilmiştir. Kistin akciğer parankimi ile sarılmamış bölgeleri olabildiğince çıkarılmış, ancak, akciğer işlevinin olabildiğince korunması amacıyla kist duvarı ile komşuluğu olsa bile, sağlıklı akciğer dokusunun çıkarılmasından kaçınılmıştır. Genel olarak kabul edilmiştir ki, perikistik kavitenin yönetiminde esas önemli olan unsur, patent bronşiyal açıklıkların kapatılmasıdır. Bu nedenle hastalarımızda görülebilen bronşiyal açıklıklar dikkatle kapatılmıştır. Yine de dört hastada uzamış kostalar arası direnaja gerektirecek bronkoplevral fistül gelişmiştir. Daha önce Erdoğan ve ark. (10) belirttiği gibi, pulmoner HK tedavisinde kapitonaj gerekli değildir. Hastalarımızın hiçbirinde akciğer dokusuna kapitonaj yapılmamıştır.

Pulmoner HK'li hastalarda akciğer dokusu rezeksiyonundan kaçınılmalıdır. Lober enfeksiyonu, çoklu kistleri, dev kistleri ve ateletazisi olan hastalarda bile lobektomi önerilmez (11). Genellikle komprese olmuş akciğer dokusu genellikle sağlam olduğundan, ameliyat sonrası tekrar genişler (12). Ayrıca, HK hastalığının tekrarlama riski mevcuttur. Bu nedenle pulmoner HK'nın cerrahi tedavisinde mümkün olduğunca fazla akciğer parankiminin korunması altın kuraldır.

Hipertonik salin solüsyonları (%15-30) gibi skolisidal ajanların rüptüre HK'li hastalarda kullanımı, hipertonik solüsyonun hava yoluna kaçıışı gibi sorunlara yola açacağından önerilmemektedir. Kist membranının çıkarılmasından sonra, kist kavitesinin serum fizyolojik ile sulandırılmış povidon iyodin ile yıkanması yeterlidir.

Benzimidazol türevlerinin ameliyat öncesi kullanımı konusunda yeterli çalışma olmasa da (13) genel eğilim komplike olmamış hastalarda ameliyat öncesi 7-14 gün kullanımının etkili olduğu yönündedir. Kliniğimizde, komplike olmamış HK hastalarında benzimidazol türevleri ameliyat öncesi 7-10 gün süre ile verilmektedir. Ancak, rüptüre HK'li hastalarda ameliyat öncesi bir süre verilmesi mümkün olmayan benzimidazol türevleri, hastaya tanı konur konmaz

başlanmış ve ameliyat sonrasında karaciğer işlev testleri izlemi ile altı ay devam edilmiştir. Uzun dönem izlemde hiçbir hastada pulmoner HK yinelemesi izlenmemiştir.

Sonuç

Tüm pulmoner HK hastaları komplikasyonların önlenmesi için, tanı konur konmaz ameliyat edilmelidirler. Pnömotoraks ve/veya plevral sıvı ile başvuran hastalara öncelikle acil olarak interkostal direnaja yapılmalıdır.

Anafilaktik raksiyonlar beklendiğinden daha enderdir ama ölümcül olabilir. Hafif alerjik durumlarda antialerjik tedavi nadiren gerekebilir. Benzimidazol türevlerinin önleyici aktivitesi oldukça yüksektir. Ameliyat sonrasında yinelemenin önlenmesi amacıyla "adjuvant" tedavi de uygulanmalıdır.

Çıkar çatışması: Bildirilmemiştir.

Kaynaklar

- Magistrelli P, Masetti R, Coppola R, Messia A, Nuzzo G, Picciocchi A. Surgical treatment of hydatid disease of the liver. A 20-year experience. Arch Surg 1991; 126: 518-22.
- Karavias DD, Vagianos CE, Kakkos SK, Panagopoulos CM, Androulakis JA. Peritoneal echinococcosis. World J Surg 1996; 20: 337-40.
- Sivriköz MC, Tunçözgür B, Nacak I, Elbeyli L. Surgical treatment of pulmonary hydatid cysts in pediatric patients. Pediatr Pulmonol 2003; 35: 87-90.
- Erdem CZ, Erdem LO. Radiological characteristics of pulmonary hydatid disease in children: less common radiological appearances. Eur J Radiol 2003; 45: 123-8.
- Aribas OK, Kanat F, Gormus N, Turk E. Pleural complications of hydatid disease. J Thorac Cardiovasc Surg 2002; 123: 492-7.
- Kuzucu A, Soysal O, Ozgel M, Yologlu S. Complicated hydatid cysts of the lung: clinical and therapeutic issues. Ann Thorac Surg 2004; 77: 1200-4.
- Tor M, Ozvaran K, Ersoy Y, et al. Pitfalls in the diagnosis of complicated pulmonary hydatid disease. Respir Med 2001; 95: 237-9.
- Gadea I, Ayala G, Diago MT, Cuñat A, de Lomas JG. Immunological diagnosis of human cystic echinococcosis: utility of discriminant analysis applied to the enzyme-linked immunoelectrotransfer blot. Clin Diagn Lab Immunol 1999; 6: 504-8.
- Hasdiraz L, Oğuzkaya F, Bilgin M. Is lobectomy necessary in the treatment of pulmonary hydatid cysts? ANZ J Surg 2006; 76: 488-90.
- Erdogan A, Ayten A, Demircan A. Methods of surgical therapy in pulmonary hydatid disease: is capitonnage advantageous? ANZ J Surg 2005; 75: 992-6.
- Karaoglanoglu N, Kurkcuoglu IC, Gorguner M, Eroglu A, Turkyilmaz A. Giant hydatid lung cysts. Eur J Cardiothorac Surg 2001; 19: 914-7.
- Akcan A, Sozuer E, Akyildiz H, Ozturk A, Atalay A, Yilmaz Z. Predisposing factors and surgical outcome of complicated liver hydatid cysts. World J Gastroenterol 2010; 16: 3040-8.
- Prousalidis J, Kosmidis C, Anthimidis G, Fachantidis E, Harlaftis N, Aletras H. Forty-four years' experience (1963-2006) in the management of primarily infected hydatid cyst of the liver. HPB (Oxford) 2008; 10: 18-24.