

Hışıltılı Çocuklarda Etyolojide Nadir Bir Neden: Trakeal Darlık

A Rare Cause of Wheezing in Children: Tracheal Stenosis

 Hilal Seda Yılmaz¹,  Sevgi Pekcan²,  Hanife Tuğçe Çağlar²,  Ender Sayan¹,  Gökçen Ünal²,
 Aslı İmran Yılmaz²,  Necdet Poyraz³

¹Necmettin Erbakan Üniversitesi, Meram Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları, Konya, Türkiye

²Necmettin Erbakan Üniversitesi, Meram Tıp Fakültesi, Çocuk Göğüs Hastalıkları, Konya, Türkiye

³Necmettin Erbakan Üniversitesi, Meram Tıp Fakültesi, Radyoloji Ana Bilim Dalı, Konya, Türkiye

Makale Tarihleri/Article Dates:

Geliş Tarihi/Recived: 12 Haziran 2022

Kabul Tarihi/Accepted: 24 Ekim 2022

Yayın Tarihi/Published Online:

14 Aralık 2022

Sorumlu Yazar/Corresponding Author:

Hilal Seda Yılmaz

Necmettin Erbakan Üniversitesi, Meram Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları, Konya, Türkiye

e mail: h.seda.akcan@gmail.com

Açıklama/Disclosure: Yazarların hiçbiri, bu makalede bahsedilen herhangi bir ürün, aygıt veya ilaç ile ilgili maddi çıkar ilişkisine sahip değildir. Araştırma, herhangi bir dış organizasyon tarafından desteklenmedi. Yazarlar çalışmanın birincil verilerine tam erişim izni vermek ve derginin talep ettiği takdirde verileri incelemesine izin vermeyi kabul etmektedirler.

ÖZET

Trakeal darlık çocuklarda nadir görülen, asemptomatik olabileceği gibi hayatı tehdit eden ağır solunum yetmezliği tablolarıyla da karşımıza çıkabilen bir hastalıktır. Etyolojide edinsel ve konjenital nedenler yer alır. Tanıda iyi bir öykü almak, fizik muayene yapmak ve fleksible bronkoskopi önemlidir. Özellikle hışıltılı solunum ile başvuran çocuklarda trakeal stenoz ayırıcı tanıda yer almalıdır. Bu yazıda hışıltılı solunum şikayeti ile başvuran trakeal stenoz vakası sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler: Trakeal stenoz, hışıltı, çocuk, solunum yetmezliği

ABSTRACT

Tracheal stenosis is a rare condition that can be asymptomatic in children, or it can present with life-threatening severe respiratory failure. Acquired and congenital causes are included in the etiology. A good history, physical examination and flexible bronchoscopy are important in the diagnosis. Tracheal stenosis should be included in the differential diagnosis, especially in children presenting with wheezing. In this article, a case of tracheal stenosis with wheezing is presented.

Key words: Tracheal stenosis, wheezing, child, respiratory failure



Atıf yapmak için/ Cite this article as: Yılmaz HS, Pekcan S, Çağlar HT, Sayan E, Ünal G, Yılmaz Aİ, Poyraz N. Hışıltılı Çocuklarda Etyolojide Nadir Bir Neden:Trakeal Darlık. Mev Med Sci. 2022;2(3): 133-136

"This article is licensed under a [Creative Commons Attribution-NonCommercial 4.0 International License](https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/) (CC BY-NC 4.0)"

GİRİŞ

Trakeal stenoz edinsel ve konjenital sebeplerle oluşan hava yolunun darlığıdır. Edinsel darlıklar genellikle uzun süren entübasyonlar sonrası oluşurken konjenital darlıklar en sık trakeomalazi, kardiyovasküler anomaliler, konjenital tümörler/kistler ve subglottik stenoz nedenleriyle oluşmaktadır. Hastalar asemptomatik olabileceği gibi nefes darlığı, stridor, solunum yetmezliği gibi ciddi semptomlarla da başvurabilirler. Girişimsel bronkoskopik yöntemler hem tanı hem de tedavide kullanılmaktadır.

Hışiltı ise çocuklarda sık görülen, etyolojisinde farklı grup hastalıkların olduğu alt hava yollarındaki darlığa bağlı oluşan sese denilir. Trakeal stenoz da hışiltılı çocuk etyolojisinde yer alan nadir nedenlerden biridir (1). Bu yazıda doğuştan beri hışiltısı ve solunum sıkıntısı nedeniyle sık hastane başvuruları olan, yapılan fleksible bronkoskopisinde trakeanın 1/3 üst kısmından itibaren darlık tespit edilen ve beraberinde venöz dönüş anomalisinin eşlik ettiği uzun segment trakeal stenoz tanısı alan 16 aylık erkek hastayı sunuyoruz.

OLGU

16 aylık erkek hasta hışiltılı solunum şikayetiyle polikliniğimize başvurdu. Hışiltılı solunumu doğduğundan beri varmış, son zamanlarda artmaya başlamış. Öyküde doğum salonunda solunum sıkıntısı gelişmesi üzerine yenidoğan yoğun bakım ünitesinde bir süre izlenmiş ancak entübe edilmeden saatler içinde taburcu edilmiş. Şikayetlerinin gece-gündüz farkı, beslenmeyle ilişkisi, sigara, duman, küf maruziyeti yoktu. Evde evcil hayvan beslenmiyordu. Hastanın altı aylıkken akut bronşiolit nedeniyle yatışı ve sonrasında benzer şikayetler ile hastaneye sık başvuruları vardı. Anne-baba arası akrabalık yoktu. Anne, baba ve kardeşlerde atopik dermatit, alerjik rinit ve astım öyküsü yoktu.

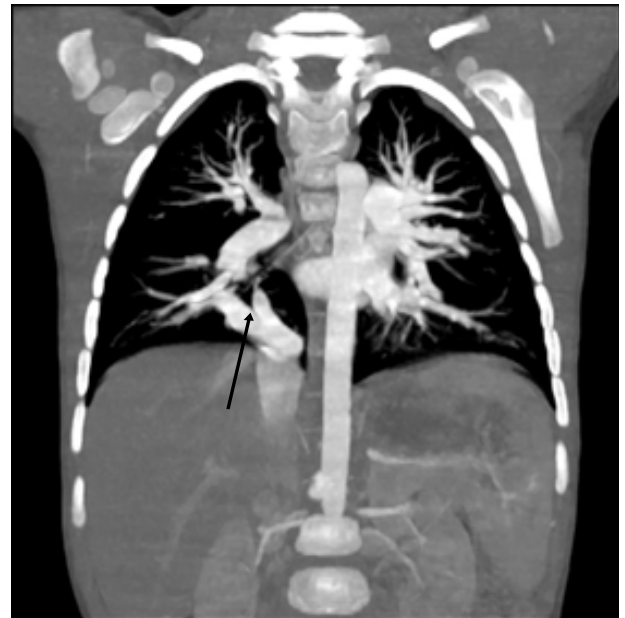
Fizik muayenede ağırlık: 10 kg (%25-50 persentil) boy: 78 cm (%50 persentil) idi. Vital bulgularında SpO₂: %97 solunum sayısı 36/dakikaydı. Her iki hemitoraks solunuma eşit katılıyordu. İnspiratuar ve ekspiratuar stridoru, bilateral ronküsleri mevcuttu. Diğer sistem muayeneleri normaldi.

Laboratuvar incelemesinde; beyaz küre sayısı 5130/mm³, nötrofil sayısı 2000/mm³, lenfosit sayısı 2510/mm³, hemogloblin 12,2 g/dL, trombosit 391.000/mm³, sedimantasyon: 4 mm/saat, C-reaktif protein: 0,4 mg/L (0-5 mg/L) ve diğer biyokimyasal tetkikleri normal saptandı. İki yönlü akciğer grafisinde patolojik bulgu yoktu. Hastanın solunum yolu viral sürüntü örneğinde Rhinovirüs ve Bocavirüs üremesi saptandı. Yapılan alerji testleri normal sonuçlandı.

İmmünolojik tetkiklerinde IgG :(340 mg/dl (574- 971)) düşüklüğü ve sitotoksik T hücre (%13 (normal>%15)) düşüklüğü saptandı. Sitotoksik T hücre oranındaki düşüklüğün kortikosteroid kullanımına bağlı olabileceği

düşünüldü. Kontrol testlerde sitotoksik T hücre oranı %17 (normal), IgG:429 mg/dl (574- 971) idi. Hasta Çocuk Alerji ve İmmunoloji bölümü tarafından süt çocuğunun geçici hipogamaglobulinemisi olarak değerlendirilerek klinik takibe alındı.

Hastaya tanısız amaçlı 4.2 nolu fiberoptik bronkoskopi yapılan işlemde trakea üst kısımdan aşağıya gittikçe trakea çapının daraldığı görüldü, vokal kordların 3-4 cm altındaki kısımda bronkoskop ilerletilirken zorlandı ve daha fazla ilerletilemedi. Hastanın toraks bilgisayar tomografisinde trakeanın toraks girişinden itibaren daraldığı, anteroposterior çapın 2,6 mm, transvers çapın 3,2 mm olduğu raporlandı. Hastadaki darlık trakeanın %50'den fazlasında olduğu için uzun segment trakeal stenoz olarak değerlendirildi. Hastanın manyetik rezonans anjiyografisinde sağ inferior pulmoner venin vena cava inferiora döküldüğü gözlemlendi (Şekil 1). Hastanın eşlik eden kardiyak anomaliler açısından bakılan Ekografisi normaldi. Hastanın bulgularının geçirdiği Bocavirüs ve Rhinovirüsüne bağlı olarak arttığı düşünüldü. Bronkoskopi işleminden sonraki ilk 3 aylık süreçte şikayetleri sebat etmedi ve stridoru azaldı. Bronkoskopi sırasında hastanın trakeası bir miktar dilate edildiğinden şikayetlerinin azalabileceği düşünüldü. İzlemlerinde solunum şikayetleri enfeksiyon döneminden sonra hafifledi ve kontrolde enfeksiyon geçirmedi. Hastanın büyümesinin normal olduğu görüldü. Hastadaki bulgularla şimdilik dilatasyon ve cerrahi düzeltme düşünülmedi. Çocuk göğüs hastalıkları



Şekil 1. MR anjiyografide siyah ok ile sağ inferior pulmoner venin vena cava inferiora açıldığı gösterilmektedir.

polikliniğinde izlemleri devam etmektedir.

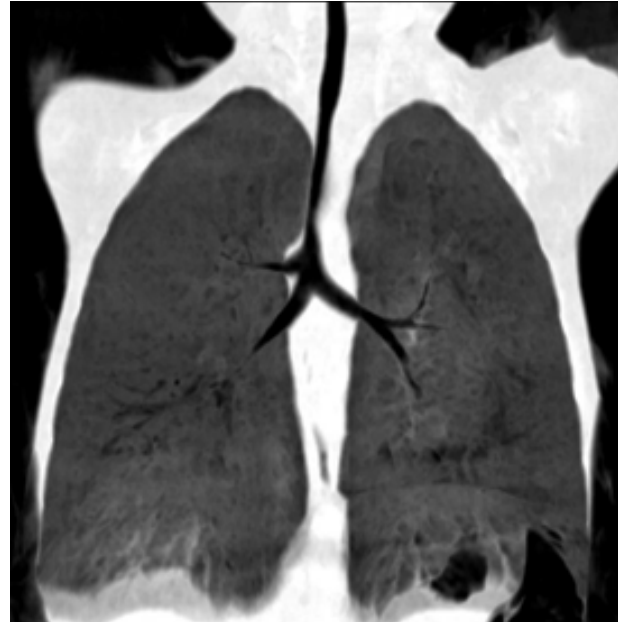
TARTIŞMA

Pediyatrik yaş grubunda konjenital ve edinsel trakeal darlıklar nadir görülür. Trakeal darlıkların en sık görülen şekli subglottik stenozdur. Subglottik stenoz, subglottik alan genişliğinin azalmasıdır ve hastaların hayat kalitesini etkileyerek disfoni, dispne gibi semptomlara neden olabilir. Edinsel darlıklara ise sıklıkla endotrakeal entübasyon, uzun süreli trakeostomiler, hava yolu yanıkları, travma ve bazı sistemik hastalıklar neden olur (2). Konjenital nedenler arasında da kardiyovasküler anomaliler, trakeomalazi, konjenital tümörler sayılabilir. Ayrıca herhangi bir nedene bağlanmayan konjenital trakeal stenozlar (KTS) da vardır.

KTS, trakeadaki C-şekil kırık yapı yerine tam bir kırık halka olması sonucu oluşan bir durumdur. Çocukluk çağında çoğunlukla tanı konulamadığından ve hastalar kaybedildiğinden gerçek insidansı tam olarak bilinmemekle birlikte yaklaşık olarak insidansı 1:64.500'dür (3). Trakeanın %50'sinden fazlasında stenoz olması uzun segment, %25'inden az kısmında stenoz olması ise kısa segment stenoz olarak adlandırılır (4). Hastamızın trakeasının %50'den fazlasında stenoz olduğundan uzun segment stenoz olarak kabul ettik. Hastalarda trakeal stenozun ciddiyetine bağlı olarak sadece stridor olabileceği gibi ventilasyon yetersizliği de görülebilir. Trakeal stenozlarda darlığın derecesine göre başvuru yaşı ve hastanın kliniği değişkenlik gösterir. Term bir yenidoğanın trakeasının ortalama çapı 6 mm'dir ve erişkinde yaklaşık 17 mm'ye kadar genişler. Trakea çapında 1 mm'lik bir daralma bile havayollarında % 44'lük daralmaya yol açabilir. Havayollarının %50 darlığı asemptomatik olabilir ancak %75'inin daralması sonucu belirgin dispne ve stridor oluşur (5). Hastamızın trakeasının anteroposterior çapı 2,6 mm, transvers çapı 3,2 mm ölçülmüştü ve semptomları literatürle uyumluydu (Şekil 2).

KTS nadir görülen, ancak yenidoğan ve infantlarda ciddi solunum yetmezliğine yol açarak hayatı tehdit edebilen bir patolojidir. Klinik semptomların değişkenliği, ilişkili kardiyovasküler anomalilerin çeşitliliği ve patolojinin nadir görülmesi hastalığın yönetiminde güçlükler neden olmakta; multidisipliner tedavi yaklaşımları ve bireysel hasta yönetimini gerektirmektedir (6). Tanı için en önemli basamak iyi bir öykü ve fizik muayenedir. Bizim hastamızda şikayetlerinin doğuştan beri olması, enfeksiyon dönemlerinde obstrüksiyonun daha da artması, entübasyon öyküsünün olmaması, ağır solunum sıkıntısı ile başvurularının olması öyküdeki yol gösterici parametrelerdir. Öyküde şikayetinin başlama zamanı, süresi, tedaviye yanıtı, ek hastalıklar ve aile öyküsü sorgulanmalıdır (7).

Fizik muayenede inspiratuvar stridor, hırıltılı/hışıltılı solunum görülür. Süt çocukluğu döneminde şikayetleri



Şekil 2. Toraks bilgisayarlı tomografi trakeal darlık görünümü

başlayan çocuklar, genellikle fiziksel aktivitenin artması ile birlikte bir yaş sonunda solunum semptomları ile başvururlar. Wheezing (hışıltı), egzersiz ile nefes darlığı gelişmesi ve solunum işinde artmanın görünür hale gelmesi, havayolu kısıtlılığını gösterir. Bu bulgular çocukluk çağı solunum sıkıntısı yapan birçok neden ile karışabilir. Buna bağlı olarak trakeal darlıklar astım, bronşiolit gibi yanlış tanımlar ile takip edilmektedir (7). Bizim olgumuz da doğuştan beri hışıltılı solunum şikayeti ile birçok kez hastaneye başvurmuş, 6 aylıkken de akut bronşiolit nedeniyle hastanede yatmıştır. Japonya'da erişkin dönemde başlayan uzun süre astım tedavisi alan bir hasta idiyopatik trakeal stenoz tanısı almıştır (8). Uygun tedavilere rağmen stridoru devam eden hastalarda üst hava yolu darlıkları akılda bulundurulmalıdır.

Görüntüleme yöntemlerinden akciğer grafisi ilk tercihtir ve laringeal bölgede hava geçişinde daralma olduğunu gösterebilir. Bilgisayarlı tomografi ve manyetik rezonans görüntüleme de tanı ve etyolojide kullanılan tekniklerdendir (10). Ancak Anton-Pacheco ve ark. (2) yaptığı çalışmada da olduğu gibi halen bronkoskopi tanı için ilk başvuru yöntemidir ve darlığın lokalizasyonunu ve derecesini belirtmede oldukça efektiftir. Hastamızda şikayetlerin doğuştan başlaması ve stridoru olması nedeniyle yapılan fiberoptik bronkoskopi ile trakeal stenoz tespit edilmiştir (Şekil 3). Doğuştan itibaren şikayetleri ve stridoru olan çocuklarda fleksible bronkoskopiyle görüntüleme tekniklerinin beraber değerlendirilmesi gerektiğini düşünüyoruz.



Şekil 3. Fiberoptik bronkoskopide trakeal stenoz görünümü

İzole KTS, hastaların %10–30’unda görülür. Sıklıkla diğer ekstratorasik ve kardiyovasküler anomalilerle birlikte dir. Kardiyovasküler anomaliler hastaların %70’inde görülür. Pulmoner arter sling, patent duktus arteriyozus, atrial septal defekt, ventriküler septal defekt, çift aortik ark, parsiyel pulmoner venöz dönüş anomali si, fallot tetralojisi ve triküspit atrezisi eşlik eden kardiyak anomalilerdir. Ekstratorasik anomaliler ise, gastrointestinal, renal ve iskelet anomalilerini içerir (2). Bu nedenle hastalar kardiyak açıdan değerlendirilmelidir (9). Bizim hastamızın kardiyolojik bulguları normaldi, vasküler anomalileri değerlendirmek için bakılan manyetik rezonans anjiyografisinde parsiyel venöz dönüş anomali si saptandı ancak bu anomali trakeaya bası yapıp darlığa yol açmadığından hastanın şikayetlerini açıklamıyordu.

Trakeal stenoz tanı ve tedavisi multidisipliner yaklaşımla yakın izlenmesi gereken, hava yolunun açık tutulmasının elzem olduğu nadir görülen bir hastalıktır (3). Tedavide cerrahi ve terapotik bronkoskopik işlemler yapılmaktadır (2). Uygun tedavi şeklinin seçilmesi hastanın klinik durumuna, trakeal stenozun şiddeti ve ilişkili konjenital anomalilerin varlığına bağlıdır (6). Pediatrik hastada tipik olarak, anlamlı solunum semptomları gelişmeden önce, trakea çapında %50’ye kadar daralma tolere edilebilmektedir. Bu yüzden solunum semptomlarının şiddeti, cerrahi için önemli belirteçtir. Günümüzde cerrahi seçenekler; rezeksiyon ve primer anastomoz, nontrakeal otolog doku (kotsal kartilaj, perikard) ile patch trakeoplasti, slide trakeoplasti ve kadavradan trakeal

transplantasyonu içermektedir (3,6) Kısa segment stenozu olan hastalar için konservatif tedavi uygundur (9). Uzun segment stenozlarda genellikle rezeksiyon ve reanastomoz tedavisi yapılır (11). Tanısal fleksible bronkoskopi işlemi sırasında hastamızın trakeası dilate olduğundan şikayetleri geriledi, hastanın şikayetlerinin takip edilmesine karar verildi. Pulmoner venöz dönüş anomali si olması nedeniyle kalp damar cerrahisi tarafından izleme alındı.

Sonuç olarak çoğunlukla subglottik bölgede görülen ve kronik hava yolu obstrüksiyonuna yol açan trakeal darlık, kronik hışıltı şikayetiyle başvuran çocuklarda akla gelmelidir. Bizim hastamızda ise daha nadir görülen konjenital uzun segmentli darlık vardı ve tanıda fleksible bronkoskopi yol göstericiydi.

Çıkar Çatışması: Çalışmada herhangi bir çıkar çatışması yoktur.

Finansal Çıkar Çatışması: Çalışmada herhangi bir finansal çıkar çatışması yoktur.

Sorumlu Yazar: Hilal Seda Akcan, Necmettin Erbakan Üniversitesi, Meram Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları, Konya, Türkiye
e-mail: h.seda.akcan@gmail.com

KAYNAKLAR

1. Uysal P, Karaman Ö. Hışıltılı Çocuğa Yaklaşım. Türkiye Çocuk Hastalıkları Dergisi 2013;7(2):99-105.
2. Antón-Pacheco JL, Cano I, García A, et al. Patterns of management of congenital tracheal stenosis. J Pediatr Surg 2003;38(10):1452-8.
3. Hewitt RJ, Butler CR, Maughan EF, et al. Congenital tracheobronchial stenosis. Semin Pediatr Surg 2016;25(3):144-9.
4. Varela P, Torre M, Schweiger C, et al. Congenital tracheal malformations. Pediatr Surg Int 2018;34(7):701-13.
5. Ho AS, Koltai PJ. Pediatric tracheal stenosis. Otolaryngol Clin North Am 2008;41(5):999-1021, x.
6. Hofferberth SC, Watters K, Rahbar R, et al. Management of Congenital Tracheal Stenosis. Pediatrics 2015;136(3):e660-9.
7. Gökçe Ş, Koç E, Aydın D, et al. A case report: An acquired tracheal stenosis. 2015;2(3):0-0.
8. Hatta C, Terada T, Kakibuchi M, et al. A case of idiopathic tracheal stenosis. Auris Nasus Larynx 2003;30(4):435-8.
9. Landry AM, Rutter MJ. Airway Anomalies. Clin Perinatol 2018;45(4):597-607.
10. Remy J, Remy-Jardin M, Artaud D, et al. Multiplanar and three-dimensional reconstruction techniques in CT: Impact on chest diseases. European radiology 1998;8(3):335-51.
11. Ryan DP, Doody DP. Management of congenital tracheal anomalies and laryngotracheoesophageal clefts. Semin Pediatr Surg 2014;23(5):257-60.