

OLGU SUNUMU

İKİ TARAFLI BRANKİYAL FİSTÜLLÜ BİR ÇOCUK

A CHILD CASE WITH BILATERAL BRANCHIAL FISTULA

Ali SAYAN
Sefer Tolga OKAY
Ahmet ARIKAN
Demet ETİT
Ümit BAYOL

ÖZET

Brankiyal arkusların kalıntısı olan brankiyal kist ve fistüller nadiren iki taraflıdır. Anomalinin özellikleri, doğumdan itibaren boynun her iki yanında akıntılı fistül yakınması olan ve iki taraflı brankiyal fistül tanısı konulan 4 yaşındaki bir erkek hasta sunularak vurgulanmıştır. Aile öyküsü bulunmayan hasta ameliyat edilerek submandibuler tükürük bezine kadar uzanan fistüller tümüyle çıkartılmıştır.

Boyunda tek taraflı veya nadiren iki taraflı olarak görülen ve doğumdan itibaren bulunan fistül veya kistlerde brankiyal kalıntılar her zaman düşünölmelidir.

Anahtar Sözcükler: Brankiyal kist ve fistül, Brankiyal kalıntı, Çocuk

SUMMARY

Branchial cysts and fistulas are the remnants of branchial arcus and rarely seen bilateral. We present a 4 year old male patient who had two-sided cutaneous leakage on his neck since birth and diagnosed as bilateral branchial fistula. The patient had no family story and the fistulas extending to submanibulary gland excised completely by operation.

Branchial remnants should be considered when unilateral or bilateral fistula or cysts seen on the neck after the birth.

Key Words: Branchial cyst and fistula, Branchial remnant, Child

GİRİŞ

Brankiyal fistüller embriyolojik olarak brankiyal arkusların kalıntıları olmakla birlikte boyunda görülen nadir gelişimsel anomalilerdendir. Bunlar brankiyal cisimin fetal gelişim boyunca tam olarak kaybolmamaları sonucu ortaya çıkar. Brankiyal yarık anomalilerinin %90'dan fazlasını ikinci brankiyal artıklar oluşturur. Bu lezyonlar olguların %2-10'unda iki taraflıdır (1-5).

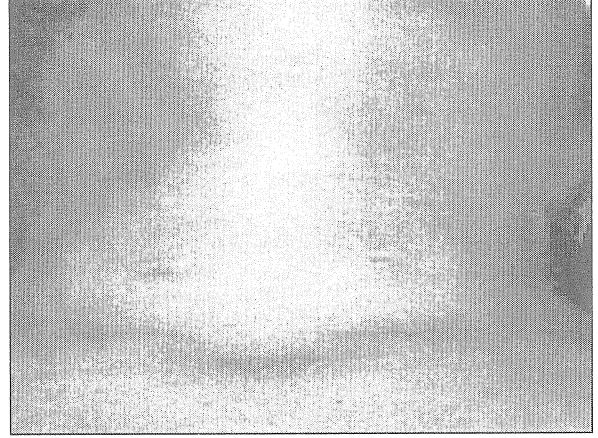
Doğumundan sonra boynun her iki yanından akıntı yakınması olan 4 yaşındaki erkek hastamız; iki taraflı brankiyal artıkların klinik ve histopatolojik özelliklerini vurgulamak amacıyla sunulmuştur.

OLGU

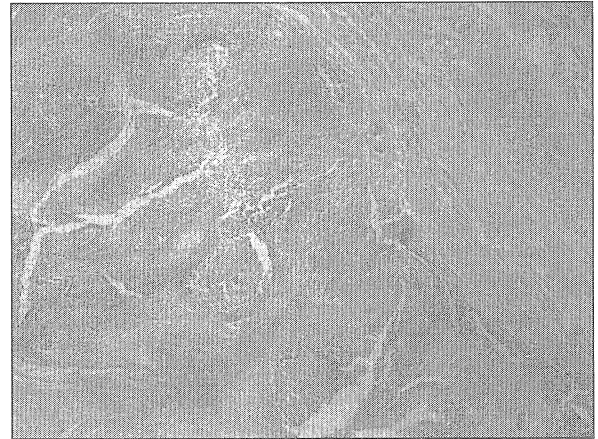
Boyun her iki yanında deriye açılan toplu iğne büyüklüğündeki deliklerden zaman zaman akıntı yakınması ile getirilen 4 yaşındaki erkek hastanın (FE Kli. Prot. No.9238216) yapılan fizik bakışında boyunun sağında ve solunda sternokleidomastoid (SKM) kasın 1/3 alt kısmının önünde fistül ağzı ile uyumlu olabilecek, yaklaşık bir toplu iğne başı büyüklüğünde açıklık görüldü (Resim 1). Hastanın ailesinden alınan öyküde bu iki açıklığın doğumda aynı şekilde bulunduğu ve ailede benzer anomalilerin olmadığı öğrenildi. Olgumuzda fiziksel bakı ve öyküden yararlanarak lezyonların "iki taraflı brankiyal fistül" olduğu düşünüldü. Daha sonra olgu ek anomali açısından incelendi ve herhangi bir patoloji saptanmadı. Hasta 3.12.2008 tarihinde ameliyata alınarak fistüllerin ağzına yapılan çevresel kesi ile fistüller çevre dokulardan ayrıldı. Keskin ve künt diseksiyon ile izlenen fistüllerin çene altına doğru uzandıkları belirlendi. İlk kesi ile fistüllerin sonuna kadar ulaşılamadığından ilk kesiden yaklaşık 5 cm. yukarıdan ikinci kesi yapılarak fistüllerin çevre dokulardan ayrılması sürdürüldü. Diseksiyon tamamlandığında fistüllerin çene altındaki her iki submandibular tükrük bezine doğru ilerledikleri ve bu bölgede sonlandıkları belirlenerek, fistüllerin sonlandıkları yere 3/0 poliglaktin ile fistüller bağlanarak çıkarıldı. Kanama kontrolü yapıldıktan sonra kesilerin katları uygun şekilde kapatıldı.

Her iki taraftan gönderilen materyallerin histopatolojik incelemesinde (Pat. Prot No.C-6904/2008); derin yumuşak dokuda ve çizgili kasta dağınık yerleşmiş tükrük bezleri komşuluğunda, yer yer solunum epiteli ve yassı epitelle döşeli kalın duvarlı kistik oluşumlar

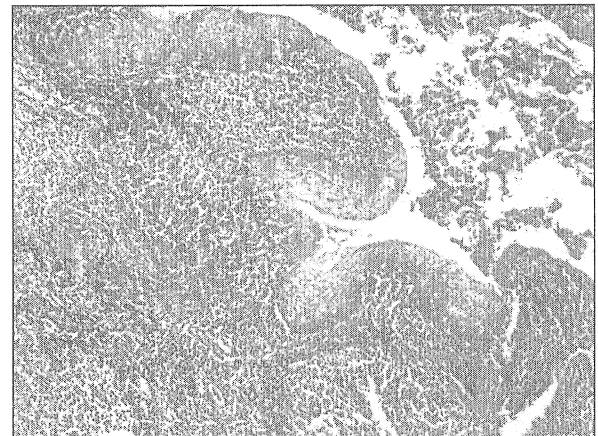
izlendi. Kist duvarlarında yaygın, bazıları lenfoid folliküller tarzında lenfoid kümelenmeler yanı sıra hafif konjesyone vasküler yapılar bulunduğu görüldü ve tanımız doğrulandı (Resim 2-3).



Resim 1. Hastadaki fistüllerin dıştan görünümü



Resim 2. Tükrük bezine komşu çizgili kas içinde kalın duvarlı skuamöz epitel içeren kistik oluşum. HEX200



Resim 3. Tektip yassı epitelle döşeli kist duvarında lenfoid çökeltiler ve kist içinde debris. HEX400.

Hastamızın yaklaşık bir yıllık izleminde erken ve geç dönemde herhangi bir komplikasyon veya yineleme görülmemiştir.

TARTIŞMA

4.-8. haftalar arasında embriyonun lateral servikofasial bölgesinde dorsal ve ventral aorta çiftlerini birbirine bağlayan 4 çift iyi gelişmiş ve solungacı temsil eden bir çift de güdük şeklinde brankiyal (faringeal) arkus bulunmaktadır. Bütün arkusların dış yüzleri ektoderm, iç yüzleri endoderm ile döşelidir. Bu arkuslar arasında dışta 4 çift brankiyal yarık, iç yüzde de bu yarıklara karşılık gelen 4 çift faringeal cep bulunur. İkinci brankiyal cebin endoderminden supratonsiller fossa, palatin tonsil; ikinci brankiyal arkustan da dil köktü, foramen çekum, stapes, stiloid proses ve hiyoid kemiğinin küçük boynuzuyla gövdesinin bir kısmı gelişir (1-3).

Brankiyal arkusların ve güdüğün doğumdan sonraki artıkları, kulak içinde veya çevresinde veya boynun lateralinde kist, fistül ve sinüsler olarak karşımıza çıkar. Brankiyal yarık anomalilerinin %90'ından fazlasının ikinci brankiyal kavisten geliştiğı düşünölmektedir. Yaklaşık %8'i birinci brankiyal malformasyon iken 3. ve 4. kavis anomalileri ender göröölür (1-5). Erkek ve kız oranı birbirine yakındır. Sinüs varsa brankiyal anomalilerin çoğı ilk on yaşta fark edilirken, dışa açılan bir sinüs olmadığı durumlarda tanı gecikebilir. Çocuklarda brankiyal fistüller, erişkinlerde ise brankiyal kistler daha sık göröölür (1-5).

Bu lezyonlar olguların %2-10'unda iki taraflıdır (1). Mayo Kliniğı serisinde brankiyal anomalilerinin %74'ünün kist, %25'inin fistül, %1'inin ise deri kalıntısı veya kıkırdak olarak göröölüğü bildirilmiştir. Londra Çocuk Hastanesindeki 98 hastanın 92'sinin boyuna açıldığını ve hastaların %78'inin 5 yaş civarında olduğu bildirilmiştir (2). Bu hasta serisinde hastaların 6'sında (%6) sinüs açılımı olmadan kıkırdak kalıntısının bulunduğu ve 6'sında ise (%6) sinüsün iki taraflı olduğu bildirilmiştir (2).

İkinci brankiyal fistüllerinin tipik belirtisi SKM kasın alt 1/3'ünden derinin ön yüzüne açılan ince bir delik olmasıdır (1-5). Sinüsten yukarıya doğru bir yol ele gelebilir ve bu yol aşağıya doğru sağılınca sümüksü bir sıvı gelebilir. Kist ise kendini SKM kasın üst 1/3'ünde kitle olarak kendini gösterebilir. Fistülün iç ağzı nazofarinks veya orofarinkste herhangi bir yere

açılabilir. Tanı için fistülün ip şeklinde ele gelmesi ve yukarıdan sıvazlamakla sümüksü sıvı gelmesi yeterlidir. Genellikle kullanılsa da ameliyat öncesi fistülogram çekilebilir. Fistül ağzı bazen ince bir zarla örtölüdür. Bu gibi durumlarda hastanın tanısı gecikir ve hasta, hekime bu zarın açılıp minimal sıvı gelmesi sonucu başvurur (2,3). İki taraflı brankiyal fistüllü olgumuzun yapılan fizik bakışında her iki fistül yolunun aşağıya doğru sağılması ile fistüllerin ağzından sümüksü salgının çıktığı görölerek tanı konulmuş ve fistülograma gerek duyulmamıştır.

Anormal yerleşimler hırıltı, boğaz ağrısı, boğazda dolgunluk, burundan konuşma, disfaji veya odinofaji; tiroid sintigrafisinde soğuk veya sıcak nodül, izole hipoglossal sinir felci veya çoğul sinir felçleri olarak kendisini gösterebilir (3).

Brankiyal yarık anomalilerinde infeksiyon gelişimi olabildiğı için tanı anında infeksiyon yoksa eksizyon önerilmektedir; ancak infeksiyon varlığında da eksizyon ertelenmelidir (1-5). İnfeksiyon için antibiyotik tedavisi ve drenaj yapılabilir. Normal doku planlarını bozmamak için drenajın ince iğne ile yapılması önerilmektedir. İnsizyon ile drenaj asla önerilmez (1-5). Mayo kliniğinde cerrahi sonrası yineleme göröölün hastaların 2/3'ünde geçirilmiş cerrahi ve /veya infeksiyon öyküsü bulunmuştur (2). Ayrıca bebeklerde cerrahi girişim 3-6 ay kadar ertelenebilir (2,3).

İkinci brankiyal yarık kökenli fistüllü olan bir çocukta eksizyon, dışa açılan delikten başlayan tek insizyonla yapılabilir. Bazı zamanlarda ise erişkinde olduğu gibi iki basamaklı merdiven şeklinde insizyon gerekebilir. Fistül ağzından başlayan eliptik bir insizyon ile fistül yolu yukarı doğru izlenir. Tiroglossal kanal kistlerinin aksine bu yol, disseksiyonu kolaylaştıracak şekilde daha belirgindir. Fistül yoluna prolen dikiş, kateter veya metal bir prob yerleştirilmesi disseksiyonu kolaylaştırabilir. Metilen mavisi kullanımı çevreye yayılabileceğinden cerrahiye zorlaştırabilir. Traktusun disseksiyonu zorlaşmaya başladığı anda fistül yolunun üzerine düşecek şekilde ikinci bir kesi yapılır. Çevre dokulardan ayrılmış fistül yolu, bu kesiden dışarı alınıp ameliyat yukarı doğru sürdürölür. Eksizyonda öncelikli amaç dış ve iç karotis arteri, hipoglossal ve glossofaringeal sinirler zarar görmeden cerrahiye gerçekleştirilmektir (1-5).

Hastamızın ameliyatında da yayınlarda tanımlandığı gibi fistül yolu izlenmiş ve ilk kesi fistülün sonlandığı yere ulaşmaya yetmediği için her iki fistülün izlenmesi için ikinci bir kesi yapılarak fistüller tümüyle çıkarılmıştır.

Sonuç olarak; boyunda orta çizginin sağında ve/veya solunda tek veya iki taraflı görülen fistül ağzı veya kistik lezyonlarda branşiyal fistül veya kist düşünülmemelidir. İnfeksiyon gelişimi nazofarinks ve orofarinks açılımlından dolayı yüksek olan fistüllerde infeksiyon ortadan kaldırıldıktan sonra cerrahi girişim ile çıkarılması şarttır. Fistülün dikkatli bir diseksiyon ile çevre dokulardan ayrılması ve sonuçlandığı yere kadar izlenerek burada bağlandıktan sonra tümüyle çıkarılması çok önemlidir. Doğumsal bir anomali olan bu lezyonun her zaman akılda bulundurulması ile kolaylıkla

tanı konulabileceği ve fistülün sabırla yapılan cerrahi girişim ile yinelemelerin tamamen önlenilebileceği görüşündeyiz.

KAYNAKLAR

1. Gupta AK, Kumar S, Jain A: Bilateral first and second branchial cleft fistulas: a case report. *Ear Nose Throat J.* 2008; 87: 291-3.
2. Smith CD: Cysts and sinuses of the neck. In: *Pediatric Surgery*. Grosfeld JL, O'Neill JA, Coran AG, Fonkalsrud EW (eds). 6th ed. Mosby Elsevier Philadelphia 2006: 861-73.
3. Waldhausen JHT: Branchial cleft and arch anomalies in children. *Semin Pediatr Surg* 2006; 15: 64-9
4. Soundappan SV, Martin H, Cass DT: Unusual neck sinus- first or second cleft? *J Pediatr Surg* 2008; 43: e 5-7.
5. Schroeder JW, Mohyuddin N, Maddalozzo J: Branchial anomalies in the pediatric population. *Otolaryngol Head and Neck Surg* 2007; 137: 289-95.

İLETİŞİM

Op. Dr. Ali Sayan
Kazım Dirik Mah.
Ankara Cad. No: 259/14
35040 Bornova / İzmir
Tel: 0 232 469 69 69 / 3228
Cep: 0 532 4124681
e-posta: alisayan@superonline.com

Başvuru : 13.07.2009

Kabul : 10.11.2009