

Çocuklarda gastrointestinal duplikasyon kistleri

Mehmet SARAÇ, Ünal BAKAL, Tugay TARTAR, Ahmet KAZEZ

Fırat Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Cerrahisi Anabilim Dalı, Elazığ, Türkiye

Öz

Amaç: Bu çalışmada nadir görülmeleri nedeni ile geniş serilere ulaşamayan gastrointestinal duplikasyon kistlerinin (GİDK) özellikleri, uygulanan cerrahi tedavi ve sonuçlarının sunulması amaçlandı.

Gereç ve Yöntem: Hastaların yaş, cinsiyet, prenatal teşhis olup olmadığı, semptom ve muayene bulguları, radyolojik ve cerrahi bulguları ile klinik sonuçları kaydedildi.

Bulgular: On iki yıl içinde toplam 11 GİDK olgusu tedavi edildi. Yaş ortalaması 42 ay (2 gün-15 yaş) olan olguların E/K oranı 6/5 idi. Olguların 6'sında ileum, 3'ünde duodenum, 1'inde çekum ve 1'inde terminal ileum, apendiks, çekum ve tüm kolonu içine alan duplikasyonlar belirlendi. Altısında intestinal rezeksiyon anastomoz, 3'ünde kistektomi, 1'inde parsiyel kistektomi ve mukozektomi, 1'inde kistotomi ve mukozektomi (Wreen prosedürü) yapıldı. Bir olguda terminal ileumda rezeksiyon anastomoz ve sigmoid kolon düzeyinden yapılan kisto-kolik anastomoz ile kistin distalinin normal kolon lümenine açıklığı sağlandı.

Sonuç: GİDK'ler bulunduğu yere göre farklı cerrahi yaklaşımlar gerektirebilirler.

Anahtar kelimeler: Gastrointestinal, duplikasyon kisti, çocuk

Abstract

Gastrointestinal duplication cysts in children

Aim: In this research, we aimed to present the characteristics of gastrointestinal duplication cysts (GIDC), surgical treatments applied, and operative results because of their rarity.

Material and Methods: Age, gender, presence of prenatal diagnosis (if any), symptoms and physical examination, radiological and surgical findings and clinical results of the patients were recorded.

Results: A total of 11 GIDC patients were treated within 12 years. Average age of the patients was 42 months (2 days-15 years) and their M/F ratio was 6/5. The patients had ileal (n=6), duodenal (n=3), and cecal (n=1) duplications, and duplications involving ileum, appendix, caecum and entire column were detected in 1 patient. Six patients were treated with intestinal resection and anastomosis (n=6), cystectomy (n=3), partial cystectomy and mucosectomy (n=1) and cystotomy and mucosectomy (n=1) (Wreen's procedure). In one case, resection anastomosis in the terminal ileum and cysto-colonic anastomosis from the sigmoid colon level were performed and opening of the distal part of the cyst into the colonic lumen was ensured.

Conclusion: GIDC's may necessitate different surgical approaches depending on their location.

Keywords: Gastrointestinal, duplication cyst, children

Giriş

Gastrointestinal duplikasyon kistleri (GİDK) gastrointestinal sistemin herhangi bir yerinde görülebilen nadir konjenital anomalilerdir. En sık ileumda görülür^(1,2). Prevalansının 1/4500-1/10000 arasında değiştiği bildirilmektedir⁽³⁾. Genellikle yaşamın ilk yılında bulgu verir. Bu olguların %20-30'unda ektopik gastrik mukoza bulunur⁽²⁾. Etyopatogenezi tam bilinmemekle birlikte, primitif barsağın solid evresinde rekanalizasyon aşamasının duraksaması, parsiyel çiftleşme, notokord ayrılması gibi hipo-

tezler savunulmaktadır⁽⁴⁾. Duplikasyon kistlerinin semptomları kistin tipine, yerleşim yerine ve büyüklüğüne bağlı olarak değişmektedir. Abdominal semptomlar kusma, karın ağrısı, distansiyon, kanama ve kitlenin palpe edilmesidir. Komplikasyonları ise perforasyon, invajinasyon, intestinal obstrüksiyon ve volvulustur⁽⁵⁾. Bu çalışmanın amacı, bir üniversite hastanesi çocuk cerrahisi kliniğinde, GİDK nedeniyle cerrahi tedavi uygulanan hastaların klinik özellikleri, uygulanan cerrahi varyasyonlar ve sonuçlarını ortaya koymaktır.

Yazarların ORCID IDs bilgileri: M.S. 0000-0002-6660-5243; Ü.B. 0000-0002-5140-8618; T.T. 0000-0002-7755-4736;

A.K. 0000-0003-0440-3555

Alındığı tarih: 01.12.2017

Kabul tarihi: 05.01.2018

Yazışma adresi: Dr. Öğr. Üyesi Mehmet Saraç, Fırat Üniversitesi Tıp Fakültesi Çocuk Cerrahisi, Elazığ - Türkiye

e-mail: mehmetasarac12@hotmail.com

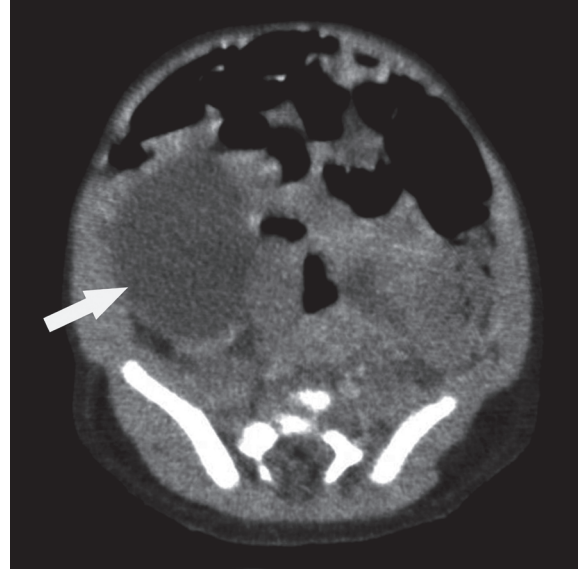
Gereç ve Yöntem

Üniversite Hastanemiz Çocuk Cerrahisi Kliniğinde Ocak 2005 - Aralık 2016 tarihleri arasında gastro-intestinal duplikasyon kisti tanısıyla cerrahi tedavi uygulanan hastaların kayıtları geriye dönük olarak incelendi. Hastaların yaş, cinsiyet, prenatal teşhisinin olup olmadığı, semptom ve bulguları, ayakta direkt batın grafisi (ADBG), batın ultrasonografisi (US), bilgisayarlı batın tomografisi (BT), manyetik rezonans görüntüleme (MR), cerrahi sırasında saptanan duplikasyon kistinin yeri ve tipi, ek barsak ve/veya sistemik anomalinin eşlik edip etmediği, uygulanan cerrahi teknikler, hastanede kalma süresi, patoloji raporları, klinik sonuçları ve komplikasyonları kaydedildi.

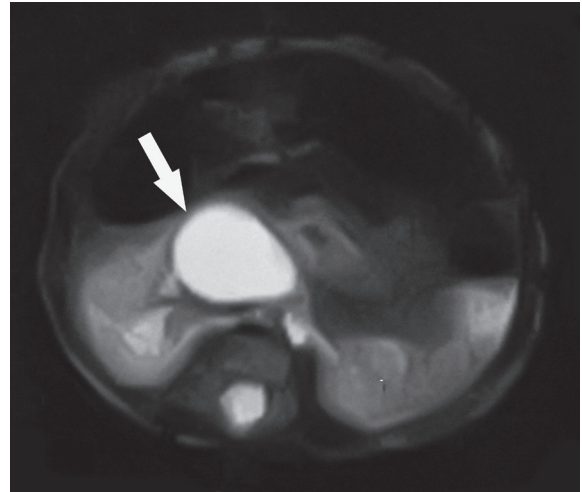
Bulgular

On iki yıllık süre içinde toplam 11 olgunun GİDK nedeniyle ameliyat edildiği belirlendi. Erkek/kız oranı 6/5, ortalama yaşları 42 ay (2 gün-15 yaş) idi. GİDK'leri olguların 6'sında ileum, 3'ünde duodenum, 1'inde de çekumda yerleşmişti. Bir olguda da terminal ileum, apendiks, çekum çıkan kolon, transvers kolon ve inen kolonu içine alan duplikasyon kisti mevcuttu. İki olgu prenatal tanısı konmuştu. Semptomlar kistin yerleşim yerine göre değişmekteydi. Bazı olgularda birden fazla semptom vardı. Semptomlar kusma (n:7), batın distansiyonu (n:5), karın ağrısı (n:3), kabızlık (n:1) ve kitlenin ele gelmesi (n:1) idi. Çekumda perforate duplikasyon kisti olan olgu akut batın tablosu ile gelmişti. Terminal ileumdaki bir olgu invajinasyon kliniği ile başvurmuştu. Terminal ileum ve total kolonik duplikasyon kisti ileus tanısı ile gelmişti. Tüm olgulara ADBG çekildi. Olguların 3'ünde hava sıvı seviyesi, 2'sinde genişlemiş mide görünümü vardı, 6'sında ise özellik yoktu. Abdominal US 10 olguda kistik yapıyı (duplikasyon kisti?, mezenter kisti?) tanımlamıştı. Abdominal BT 5 ve MR görüntüleme ise 2 olguda tanı koymada yardımcı oldu (Resim 1, 2). Özofagus mide duodenum grafisi 2 olguda çekildi ve bunlarda duodenum 2. kısımda kısmi geçiş ve dolmuş defekti tanımlandı (Resim 3). GİDK olgularının 6'sında intestinal rezeksiyon anastomoz, 3'ünde kistektomi, 1'inde parsiyel kistektomi ve mukozektomi, 1'inde kistotomi ve mukozektomi (Wreen prosedürü) yapıldı. Terminal ileum ile sigmoid kolon arasında total tübüler duplikasyon kisti olan hastada kistin dis-

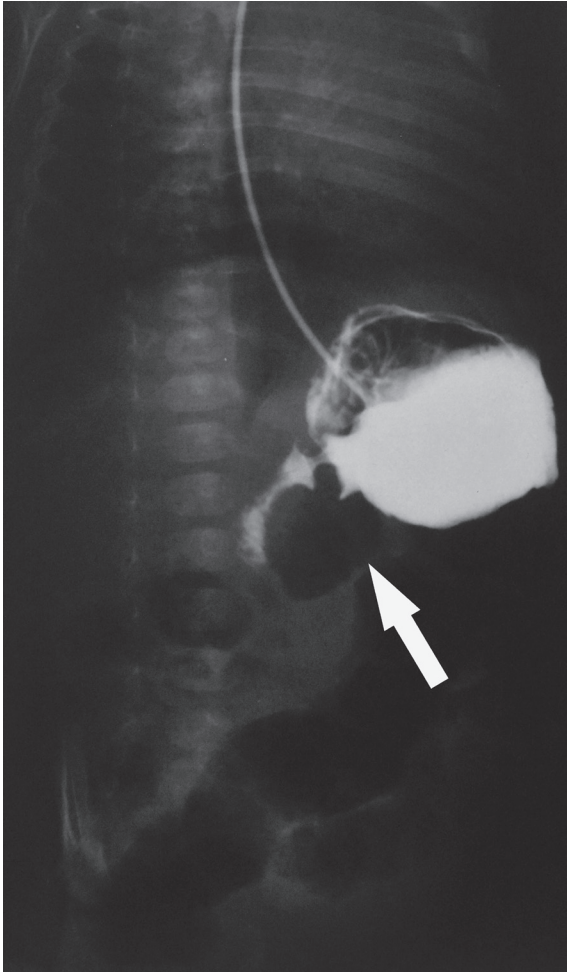
tali kapalı sonlanıyordu. Bu olguda terminal ileumda rezeksiyon anastomoz ile birlikte, apendiks ve kolon boyunca devam eden tübüler GİDK, sigmoid kolon düzeyinden yapılan kolotomi ile kistin distalinin normal kolon lümenine açılması sağlandı. Ortalama hastanede kalma süresi 8.9 gün (min:5, max:16 gün) idi. Tüm hastalar komplikasyonsuz taburcu edildi. Morfolojik ve histopatolojik olarak tüm dokular duplikasyon kisti olarak değerlendirildi. Resim 4'te distal ileumun kistik duplikasyon kisti görülmektedir. Ameliyat öncesi teşhis ve uygulanan cerrahi prosedürler hastalardaki kistin lokalizasyonuna göre Tablo 1'de gösterilmektedir.



Resim 1. İleal duplikasyon kisti BT görüntüsü.



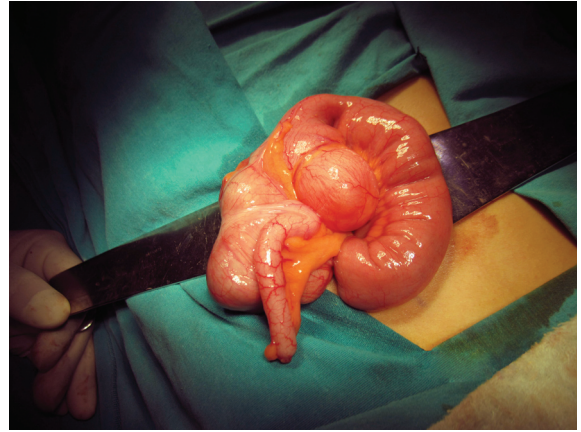
Resim 2. Duodenumda duplikasyon kisti MR görüntüsü.



Resim 3. Kontrastlı pasaj grafisinde duodenumda dolunluk defekti ve pasajda daralma.

Tartışma

Gastrointestinal duplikasyonlar etiolojisi tam olarak bilinmeyen, ağızdan anüse kadar herhangi bir lokalizasyonda görülebilen nadir konjenital anomalilerdir (6,7). Pulgandla ve ark. (8) yayınlamış oldukları seride duplikasyon kistlerinin %31,5 ileum, %30,2 ileoçe-



Resim 4. Distal ileumda kistik duplikasyon kisti.

kal valv, %9,6 duodenum, %8,2 mide, %8,2 jejunum, %6,8 kolon ve %5,5 oranında da rektumda yerleştiğini bildirmişlerdir. Sunulan çalışmada, olguların 6'sında ileumda, 3'ünde duodenumda, 1'inde çekumda, 1'inde ise terminal ileum, apendiks, çekum ve tüm kolon boyunca duplikasyon kisti mevcuttu.

Literatürde GİDK'in erkeklerde daha sık görüldüğü bildirilmektedir (5). Çalışmamızda, 6 erkek, 5 kız olgu mevcuttu. Duplikasyon kistleri herhangi bir yaş grubunda görülmekle beraber, çoğunlukla bir yaşından küçük çocuklarda görülmektedir (9). Çalışmamızdaki 11 olgudan 7'si bir yaşın altındaydı.

Duplikasyon kistleri genellikle gastrointestinal sistemle bağlantısı olan sferik veya tübüler yapılarıdır. Kist duvarında iyi gelişmiş düz kas içerirler, büyük bir kısmında sindirim sisteminin epiteline benzer epitel içerir ve bağırsak duvarı içinde veya komşuluğunda yerleşim gösterip barsaklarla ortak damar yapısına sahiplerdir (10). Sunduğumuz çalışmada, 9 hastada sferik duplikasyon kisti, 2 olguda ise tübüler duplikasyon kisti mevcuttu.

Tablo 1. Kistin yerleşim yeri, ameliyat öncesi tanı ve yapılan cerrahi prosedürler.

Yerleşim Yeri	n	Ameliyat Öncesi Öntanı	n	Cerrahi Prosedür	n
Duodenum	3	İntraabdominal kist	2	Kistektomi	2
		Prenatal tanı	1	Kistotomi + mukozektomi	1
İleum	7	İntraabdominal kist	4	Rezeksiyon + anastomoz	6
		İnvajinasyon	1		
		Malrotasyon, İleus	1		
		Prenatal tanı	1	Kistektomi	1
Çekum	1	Akut batın	1	Kistektomi+mukozektomi	1
İleum Apendiks Çekum Kolon	1	Malrotasyon, ileus	1	Rezeksiyon anastomoz + kolotomi ile kistokolostomi	1

Duplikasyon kistlerini tanımlamak amacıyla ADBG, kontrastlı görüntüleme, abdomen US, BT ve MR kullanılmaktadır ⁽¹⁰⁾. Serimizdeki tüm olgulara ADBG çekilmiştir. Olguların 3'ünde hava sıvı seviyesi, 2'sinde genişlemiş mide görünümü vardı, 6'sında özellik yoktu.

Özofagus mide duodenum kontrastlı grafisi dolun defektini gösterir. Kistin normal bağırsak lümeni ile bağlantısı nadir görülür ⁽¹¹⁾. Özofagus mide duodenum kontrastlı grafisi 2 olgumuzda çekildi. İkisinde de duodenum 2. kısımda kısmi geçişe izin veren dolun defekti mevcuttu.

Ultrasonografi çocuklarda intraabdominal kistlerin lokalizasyonu ve kökeni hakkında bilgi verebilir. Prenatal tanı asemptomatik olgularda elektif şartlarda cerrahi planlamanın yapılabilmesi için önemlidir. Prenatal yapılan US ile %30 oranında tanı konulabilmektedir. Ultrasonografide kistin intestinal duvarının görülmesi duplikasyon kistini düşündürür. Ultrasonografide duplikasyon kistlerinin ayırıcı tanısında; koledok kisti, mezenter kisti ve over kistleri yer almaktadır ⁽¹²⁾. Sunulan 11 olgunun 10'unda abdominal US'de kistik yapı (duplikasyon kisti?, mezenter kisti?, over kisti?, koledok kisti?) tanımlandı. US'de 3 olguda duodenal duplikasyon kistleri ile koledok kisti ön tanıları konulurken, ileal düzeydeki kistlerde ise duplikasyon kisti, mezenter kisti, over kisti ve ileus ön tanıları konulmuştu. Serimizde 2 olguda prenatal intraabdominal kist tanısı konulabilmişti. Bir olguda semptom vermeden elektif şartlarda rezeksiyon anastomoz yapıldı. Diğer olguda prenatal tanı konulmasına rağmen, semptomları başlamadan aile kontrole getirmemişti. Abdominal BT kisti tanımlamada US'ye göre çok daha yararlı bilgiler verir. BT'de kistler ince duvarlı tubuler yapı veya içi sıvı dolu kistik yapı olarak tanımlanır ⁽¹³⁾. Çalışmamızda, 11 olgunun 5'ine BT çekilmiştir. Kistik duplikasyon kisti olan 4 olguda duplikasyon kisti tanısı ön tanılar arasındaydı. Distal ileum ve total kolonik tubuler duplikasyon kisti olan olguyu malrotasyon olarak tanımlamıştı. Batın MR görüntüleme T1 ağırlıklı görüntülerde heterojen dansiteli, T2 ağırlıklı görüntülerde homojen dansiteli intrakistik sıvıyı gösterir ⁽¹⁴⁾. Sunduğumuz çalışmada, 2 olguda MR görüntüleme yapılmıştı. Bir olguda duodenumda kistik, bir olguda ise ileumda tübüler duplikasyon kisti tanımlandı.

Duplikasyon kistlerinin ağızdan anüse kadar geniş bir lokalizasyonda görülmesine bağlı olarak kistlerin klinik semptomları ve bulguları asemptomatikten akut batına kadar değişen bir spektruma sahiptir. Bu yüzden ayırıcı tanısında Milbrandt ve ark.'nın ⁽¹⁵⁾ bildirdiği gibi invajinasyon yer almaktadır. Çalışmamızdaki 7 aylık erkek olgu invajinasyon ön tanısı ile ameliyata alındı. Olguda invajinasyona neden olan duplikasyon kisti mevcuttu. İleumdaki duplikasyon kistine invajine segment ile beraber rezeksiyon anastomoz uygulandı. Rathi ve ark.'nın ⁽¹⁶⁾ bildirdiği gibi duplikasyon kistleri perfore olup, akut karın tablosuna sebep olabilirler. Yedi yaşındaki erkek olgu akut apandisit taklit eden bulgular ile gelmişti. Çekilen batın BT'de çekumda kistik yapı tanımlanmıştı. Laparotomide çekumda perfore duplikasyon kisti saptandı. Kısmi kistektomi ve mukozektomi yapıldı.

Duplikasyon kistlerinin ileus ve volvulusa neden olabileceği de bildirilmiştir ⁽¹⁷⁾. İki yaşında kız olgu malrotasyon ve ileus ön tanısı ile ameliyata alındı. Hastada distal ileal ve apendiks dahil total kolonik duplikasyon kisti mevcuttu. Terminal ileuma rezeksiyon anastomoz yapıldı. Total kolonik kist ise rektosigmoid bileşkede kolotomi ile kistin normal kolon lümenine açıklığı sağlandı.

Over kisti ve over torsiyonu da ayırıcı tanıda bildirilmiştir ⁽¹⁸⁾. Terminal ileumda duplikasyon kisti olan bir olgumuzda ameliyat öncesi US over kisti?, duplikasyon kisti? olarak tanımlamıştı. Tanısal laparoskopide duplikasyon kisti olduğu belirlendi. İleal rezeksiyon anastomoz yapıldı.

Duodenal duplikasyon kistleri duodenumda kısmi intestinal obstrüksiyona neden olan koledok kistleri ile karışabilirler ⁽¹⁹⁾. Duodenum duplikasyon kisti olan üç olgumuz mevcuttu. Üç olgunun ameliyat öncesi ayırıcı tanısında duplikasyon kisti ve/veya koledok kisti ön tanılarımız vardı. Bu olguların ikisinde kusmaya neden olan obstrüksiyon bulguları mevcuttu. Yine terminal ileumda duplikasyon kisti olan 4 olgu ise duplikasyon kisti ve/veya mezenter kisti ön tanıları ile ameliyata alınmıştı. Bu yüzden ameliyat öncesi tanılar ile ameliyat sonrası tanımlamalar farklı olabilmektedir.

Cerrahi müdahale kistin lokalizasyonuna ve tipine bağlı olarak değişmektedir. Özofageal ve gastrik

duplikasyon kistleri kistektomi ile diğer intestinal kistler ise ya kistektomi ya da rezeksiyon anastomoz ile tedavi edilmelidirler. Enterik sistemle lümen bağlantısı olmayan duplikasyon kistlerinde kistektomi yeterlidir. Kistektominin olanaksız olduğu olgularda ise kistotomi ve mukozektomi (Wreen prosedürü) bir seçenektir ⁽¹²⁾. Çalışmamızdaki olguların 6'sında intestinal rezeksiyon anastomoz, 3'ünde kistektomi, 1'inde parsiyel kistektomi ve mukozektomi, 1'inde kistotomi ve mukozektomi yapıldı. Terminal ileumda rezeksiyon anastomoz yapılan bir olgu, apendiks ve kolon boyunca devam eden tübüler duplikasyon kisti, sigmoid kolondan yapılan kolotomi ile kistin distali normal kolon lümenine açıklığı sağlandı.

Sonuç olarak, gastrointestinal duplikasyon kistleri çocukluk çağında nadir görülürler. Klinik semptomları oldukça farklı olup, invajinasyon, akut karın, volvulus, over torsiyonu, ileus, koledok kistleri ve mezenter kistleri ile aynı klinik bulguyu verebilirler. Özellikle bir yaş altı olgularda bu ön tanımlarla cerrahi uygulanacak hastalarda duplikasyon kisti cerrahların aklına gelmelidir. Farklı özellikler ve farklı lokalizasyonlarda olabilmeleri nedeni ile cerrahi tedavi yöntemleri de farklılık göstermektedir.

Çıkar çatışması: Bu makalenin yazarları herhangi bir çıkar çatışması olmadığını bildirirler.

Kaynaklar

1. Sinha A, Ojha S, Sarin YK. Completely isolated, noncontiguous duplication cyst. Eur J Pediatr Surg. 2006;16(2):127-9. <https://doi.org/10.1055/s-2006-924004>
2. Kumar K, Dhull VS, Karunanithi S et al. Synchronous thoracic and abdominal enteric duplication cysts: accurate detection with (99 m)Tc-pertechnetate scintigraphy. Indian J Nucl Med. 2015;30:59-61. <https://doi.org/10.4103/0972-3919.147545>
3. Macpherson RI. Gastrointestinal tract duplications: clinical, pathologic, etiologic, and radiologic considerations. Radiographics. 1993;13:1063-80. <https://doi.org/10.1148/radiographics.13.5.8210590>
4. Rasool N, Safdar CA, Ahmad A et al. Enteric duplication in children: clinical presentation and outcome. Singapore Med J. 2013;54:343-6. <https://doi.org/10.11622/smedj.2013129>
5. Erginel B, Soysal FG, Ozbey H et al. Enteric duplication cysts in children: A single-institution series with forty patients in twenty-six years. World J Surg. 2017;41:620-4. <https://doi.org/10.1007/s00268-016-3742-4>
6. Hoshino I, Maruyama T, Fukunaga T et al. Intussusceptions associated with an ileal duplication cyst. Intern Med. 2011;50:1255. <https://doi.org/10.2169/internalmedicine.50.5213>
7. Olajide AR, Yisau AA, Abdulraseed NA et al. Gastrointestinal duplications: Experience in seven children and a review of the literature. Saudi J Gastroenterol. 2010;16:105-9. <https://doi.org/10.4103/1319-3767.61237>
8. Puligandla PS, Nguyen LT, St-Vil D et al. Gastrointestinal duplications. J Pediatr Surg. 2003;38:740-4. <https://doi.org/10.1016/j.jpso.2003.50197>
9. Karnak I, Ocal T, Senocak ME et al. Alimentary tract duplications in children: report of 26 years' experience. Turk J Pediatr. 2000;42:118-25.
10. Rattan KN, Bansal S, Dhamija A. Gastrointestinal duplication presenting as neonatal intestinal obstruction: An experience of 15 years at tertiary care centre. J Neonatal Surg. 2017;1:5.
11. Berseth CL. Disorders of the intestine and Pancreas, In Taeusch HW, Ballard RA (eds): Avery's Diseases of the Newborn, 7th ed. WB Saunders, 1998, pp: 923.
12. Gupta P, Sharma R, Kumar S et al. Role of MRI in fetal abdominal cystic masses detected on prenatal sonography. Arch Gynecol Obstet. 2010;281:519-26. <https://doi.org/10.1007/s00404-009-1190-1>
13. Lee NK, Kim S, Jeon TY et al. Complications of congenital and developmental abnormalities of the gastrointestinal tract in adolescents and adults: evaluation with multimodality imaging. Radiographics. 2010;30:1489-507. <https://doi.org/10.1148/rg.306105504>
14. Fanaroff AA. Selected Disorders of the Gastrointestinal Tract, in Klaus MH, Fanaroff AA (eds): Care of the High Risk Neonate 5th ed. Harcourt (India) Pvt Ltd, WB Saunders, 2001 pp: 179.
15. Milbrandt K, Sigalet D. Intussusception associated with a Meckel's diverticulum and a duplication cyst. J Pediatr Surg. 2008;43:21-3. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2008.09.005>
16. Rathi PK, Memon AS, Khatri M. Perforated ileal duplication cyst: a diagnostic dilemma. J Coll Physicians Surg Pak. 2009;19:665-7.
17. Rangaswamy R, Nyuwi KT, Singh CG et al. Enteric Duplication Cyst Leading to Volvulus: An Unusual Cause of Acute Intestinal Obstruction - A Case Report. J Clin Diagn Res. 2016;10:20-1. <https://doi.org/10.7860/JCDR/2016/22976.9091>
18. Iijima S. A Wandering Abdominal Mass in a Neonate: An Enteric Duplication Cyst Mimicking an Ovarian Cyst. Case Rep Pediatr. 2017;9:209126. <https://doi.org/10.1155/2017/9209126>
19. Alonso Ciodaro G, Santamaria Ossorio JI et al, [Neonatal intestinal obstruction due to cecal duplication]. Cir Pediatr. 2015;28:205-7.