

# Özofagus, duodenum ve anal atrezi birlikteliği görülen yenidoğana cerrahi yaklaşım

İrem İNANÇ, Oğuz KIZILKAYA, Ümit Nusret BAŞARAN, Dinçer AVLAN

Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Cerrahisi Anabilim Dalı, Edirne, Türkiye

## Öz

Antenatal polihidroamniyos nedeniyle başka bir merkezde takip edilen yenidoğan, anal atrezi saptanması ve nazogastrik sonda takılamaması üzerine merkezimize sevk edildi. Kontrastlı direkt grafi çekilen hastada atrezik özofageal poş saptandı, "double-bubble" işaretinin görülmesiyle duodenal atrezi tanısı da konuldu. Hastanın doğum tartısı ve haftasının uygun olmasıyla aynı seansta önce laparotomiyle gastrojejunostomi yapıp sigmoid diverjan kolostomi açıldı, sonrasında sağ torakotomiyle ekstraplevral trakeoözofageal fistül onarımı ve özofagus atrezisi için uç uca anastomoz uygulandı. Sunulan olgu gastrointestinal sisteme ait üç atrezinin eşzamanlı görülmesine ender bir örnek olmakla birlikte tanı ve tedavi yaklaşımındaki seçenekleri ve güçlükleri de irdelemeyi amaçlamaktadır.

**Anahtar kelimeler:** Yenidoğan, özofagus atrezisi, duodenal atrezi, anal atrezi

## Abstract

**Surgical approach to a newborn with esophageal, duodenal and anal atresia**

A newborn who had been followed up by another center with the diagnosis of antenatal polyhydroamniosis was referred to our hospital because of detection of anal atresia and inability to insert a nasogastric tube. A contrast radiography was performed and an esophageal atretic pouch was detected. Visualization of a double bubble sign also established the diagnosis of duodenal atresia. Since the patient's birth week and birth weight was suitable; through laparotomy incision gastrojejunostomy was performed and sigmoid diverting colostomy was opened. Then, right thoracotomy was performed, and tracheoesophageal fistula was closed, and finally end-to-end esophageal anastomosis was realized to treat esophageal atresia. Our case is a rare example of isochronous anomalies of gastrointestinal system and we also aim to analyze alternatives, and challenges concerning diagnosis and treatment.

**Keywords:** Newborn, esophageal atresia, duodenal atresia, anal atresia

## Giriş

Özofagus atrezisi ve trakeoözofageal fistül (TÖF), ortalama 10000 canlı doğumda 2,5-2,8 oranında görülmektedir <sup>(1)</sup>. Bu hastaların yaklaşık yarısına ek anomaliler eşlik eder ve bunlar arasında da en sık görüleni kardiyak anomalilerdir. Bunu sindirim sistemi ve üriner sistem anomalileri izler. Literatürde VACTERL ve CHARGE sendromlarıyla sık birliktelik gösterdiği tanımlanmıştır <sup>(1,2)</sup>. Duodenal atrezi yalnız başına 5000 ile 10000 canlı doğumda bir ve erkeklerde kızlara göre daha sık görülmekte olup, özofagus atrezisiyle birlikte görüldüğü de bildirilmektedir <sup>(2)</sup>.

Bu çalışmada gastrointestinal sisteme ait 3 atrezinin (özofagus atrezisi, duodenal ve anal atrezi) birlikte olduğu bir yenidoğan hasta sunulmuş ve bu hastadaki tanı ve tedavi yaklaşımlarının literatür bilgileri ışığında tartışılması amaçlanmıştır.

## OLGU SUNUMU

Preeklampsi nedeniyle 36 haftalık gebelik sonrası C/S ile 2290 g doğan ve prenatal polihidroamniyos öyküsü olan erkek bebek anal atrezi ön tanısıyla kliniğimize konsülte edildi. Fizik muayene sırasında anal açıklığın olmadığı görüldü, bunun dışında sistem muaye-

**Yazarların ORCID IDs bilgileri:** İ.İ. 0000-0003-1162-8613

**Alındığı tarih:** 08.09.2017

**Kabul tarihi:** 22.11.2017

**Yazışma adresi:** Dr. İrem İnanç, Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi Çocuk Cerrahisi Anabilim Dalı, Edirne

**e-mail:** ireminanc@trakya.edu.tr



**Resim 1.** Özofagus atrezisi tanısı için çekilen kontrastlı proksimal poş grafisi.

neleri olağandı. Nazogastrik sonda mideye ilerletilemeyince kontrastlı özofagus grafisi çekildi, sondanın özofagusta kıvrıldığı ve proksimal özofageal poşun mevcut olduğu görüldü (Resim 1). Ayrıca midenin distalindeki havanın oldukça küçük görüldüğü atipik “double bubble” görüntüsü mevcuttu (Resim 2). Bunun üzerine hastada özofagus atrezisi ve distal TÖF’e eşlik eden pilorik atrezi veya duodenal atrezi olabileceği düşünüldü. Hastaya olası ek anomalileri ameliyat öncesi belirleyebilmek için ekokardiyogram ve üriner ultrasonografi yapıldı. Kardiyak ve üriner sisteme ait patoloji saptanmadı. Direkt grafilerinde vertebra anomalisi ve sakral agenezi bulunmamaktaydı. Gastrointestinal sistemin proksimalindeki gazın intestinal atrezi nedeniyle distale geçememesi anal atrezinin seviyesinin belirlenmesine engel oldu. Bu nedenle hastaya diverjan kolostomi açılmasına karar verildi. Hastanın doğum haftası ve doğum tartısının uygun olması ve ek anomalisi olmaması göz önünde bulundurularak duodenal atrezi ve özofagus atrezisi onarımlarının ertelenmeden aynı seansta yapılması planlandı.

Postnatal 4. gününde önce laparotomi yapılarak tip 2 duodenal atrezi saptandı. Duodenumun c kavsini oluşturmadığı, çekumun sol üst kadranda yerleşim gösterdiği görüldü, nonrotasyon olduğuna karar ve-



**Resim 2.** Duodenumun distaline gaz geçişinin olmaması.

rildi. Duodenum 1. kıtasının duodenal atrezi beklenen aksine dilate değil, aksine atrezik görünümde olduğu görüldü. Duodenoduodenostomi için iki uç prova edildi. Ancak proksimal duodenal segmentin anastomoz için son derece dar olduğuna karar verildi. Anizoperistaltik gastrojejunostomi yapıldı. Anal atrezi için de sigmoid kolondan diverjan kolostomi açılarak torakotomiye geçildi. Sağ torakotomiye ekstraplevral olarak TÖF bağlandı. Proksimal ve distal özofagus segmentleri arasında yaklaşık 3 cm mesafe mevcuttu. Gough tarafından tanımlanan anterior flep tekniği<sup>(3)</sup> kullanılarak özofagus uç uca anastomozla birleştirildi. Toplam ameliyat süresi 3,5 saatti.

Hasta, gergin olan özofageal anastomozun güvenliğini sağlamak amacıyla post operatif 6 gün entübe ve sedatize olarak takip edildi. Beslenmeyi tolere ettikten sonra 15. gün sorunsuz olarak taburcu edildi.

### **Tartışma**

Çoklu anomaliye sahip hastalarda mevcut anomalilerin düzeltilmesi birden fazla ameliyat gerektirdiğinden, ameliyat için doğru zamanın belirlenmesi, tek seansta yapılıp yapılamayacağı kararı ve prognozda belirleyici rol oynayan ek anomalilerin ameliyat ön-

cesi saptanması gerekmektedir. Literatürde gastrointestinal sistemin birden fazla anomalisinin görüldüğü olgular mevcuttur (4-9). Ancak olgumuzdaki gibi eşzamanlı olarak özofagus, duodenal ve anal atrezi görülen yalnızca bir olgu bildirilmiştir (8). Bu olguda operasyon öncesi nazogastrik sonda TÖF'ten geçerek mideye ulaşmış ancak çıktığında yeniden takılmanınca özofagus atrezisi tanısı almıştır. Bu çalışmada, özofagus atrezisi ve TÖF tanısının ameliyat öncesi konmuş olsa proksimalden distale onarım yapılması gerektiği önerilmiş, bunun nedeninin de TÖF onarımıyla solunum yolunu güvenceye almak olduğu belirtilmiştir (8).

Literatürde özofagus atrezisi, TÖF ve duodenal atrezi birlikteliği olan olgularda cerrahi onarımın tek seansta ya da aşamalı olarak yapılması konusunda değişik görüşler mevcuttur (4-9). Nabzdyk ve ark. (7) 10 hasta içeren serilerinde önce gastrostomi açılıp yaklaşık 1 hafta sonra EA ve TÖF onarımı yapıldığını bildirmiş ve bunun nedenini öncelikle gastrik distansiyonu azaltmak ve aspirasyon riskini ortadan kaldırmak olarak açıklamışlardır. Frago ve ark. (9) ise 8 hastadan oluşan serilerinde tek seansta tüm anomalileri onarmış ve hastanın klinik durumu izin veriyorsa tek seansta onarım yapılmasını önermişlerdir. Bu tip hastaların klinik durumunu mevcut hastalığından çok altta yatan kardiyak anomaliler, prematürite ve düşük doğum ağırlığının belirlediği bilinmektedir (6-10).

Hastamızda kardiyak anomali saptanmamıştı ancak tartısının 2500 g'ın altında olması risk oluşturmaktaydı. Bu nedenle ameliyat süresini kısa tutmaya çalışmak ve onarılabilir tüm anomalileri onarmak hedeflenmişti. Ameliyata laparotomiyle başlandı. Safra reflüsü riskini arttırma olasılığına rağmen, duodenal atrezi onarımı için gastrojejunostomi seçilme nedeni bu bölgede yapılacak diseksiyonun safra yolu yaralanmasına yol açma riski taşıması, nonrotasyon saptanması ve duodenum 1. kütasının anastomoza uygun genişlikte olmamasıydı. Anal atrezinin tipi belirlenemediğinden kolostomi açıldı ve post operatif görüntüleme planlandı. Anestezi sırasında sorun yaşanmamasıyla özofagus atrezisi ve TÖF de aynı seansta onarılabilir.

Hastamızın preoperatif dönemde tanısız işlemlerinin tamamlanması için geçen 3 günlük sürede TÖF ve du-

odenal atrezi nedeniyle batın distansiyonunun progresif artış gösterdiği dikkat çekmiştir. Bu da intestinal perforasyon riskini doğurmuştur. Ameliyat sırasında hasta entübe edildiğinde mekanik ventilasyona bağlı olarak TÖF'ten intestinal sisteme hava kaçacağı artacağından bu tip hastalarda intestinal atrezi onarımının ilk sırada yapılması gerektiği düşüncesindeyiz. Yine de ameliyat öncesi tüm olasılıklar göz önünde bulundurulmalı ve gerekirse ameliyat sırasında stratejinin değişebileceği akılda tutulmalıdır.

Çoklu anomaliye sahip olan ve düzeltilmesi için birden fazla ameliyat gereken hastalarda tedavi için belli bir kurala bağlı kalmanın olası olmadığı görüşündeyiz. Literatürde de bildirilen yeterli sayıda olgu bulunmadığından tedavi için izlenmesi gereken belli bir kural mevcut değildir. Ancak, hastamızda aynı seansta laparotomi ve torakotomi yapılmasının olumsuz bir sonuca yol açmadığı gözlenmiştir. Hastanın doğum tartısı ve haftası, ek anomalisi olup olmadığı göz önünde bulundurulması gereken önemli faktörlerdir. Gerek cerrahi gerekse anestezi alanında gelişen teknoloji ve teknikler ile bu alanda artan bilgi birikimi bu hastaların aynı seansta mevcut tüm anomalilerine yönelik girişimleri olası kılmaktadır.

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

## Kaynaklar

1. Rothenberg SS. Esophageal atresia and tracheoesophageal fistula malformations, in Ashcraft's pediatric surgery. 2014, Elsevier Inc. p. 365-384.
2. Aguayo P and Ostlie DJ. Duodenal and intestinal atresia and stenosis, in Ashcraft's pediatric surgery. 2014, Elsevier Inc. p. 414-429.
3. Gough MH. Esophageal atresia--use of an anterior flap in the difficult anastomosis. J Pediatr Surg. 1980;15(3):310-1. [https://doi.org/10.1016/S0022-3468\(80\)80143-6](https://doi.org/10.1016/S0022-3468(80)80143-6)
4. Spitz L, Ali M, Brereton RJ. Combined esophageal and duodenal atresia: experience of 18 patients. J Pediatr Surg. 1981;16(1):4-7. [https://doi.org/10.1016/S0022-3468\(81\)80105-4](https://doi.org/10.1016/S0022-3468(81)80105-4)
5. Dave S and Shi EC. The management of combined oesophageal and duodenal atresia. Pediatr Surg Int. 2004;20(9):689-91. <https://doi.org/10.1007/s00383-004-1274-8>
6. Ein SH, Palder SB, Filler RM. Babies with esophageal and duodenal atresia: a 30-year review of a multifaceted problem. J Pediatr Surg. 2006;41(3):530-2.

- <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2005.11.061>
7. Nabzdyk CS et al. Management of patients with combined tracheoesophageal fistula, esophageal atresia, and duodenal atresia. *Int J Surg Case Rep.* 2014;5(12):1288-91. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2013.09.016>
  8. Patel RV, et al. Trilogly of foregut, midgut and hindgut atresias presenting in reverse order. *BMJ Case Rep.* 2014. 2014.
  9. Fragoso AC et al. Defective upper gastrointestinal function after repair of combined esophageal and duodenal atresia. *J Pediatr Surg.* 2015;50(4):531-4. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2014.05.029>
  10. Escobar MA, et al. Duodenal atresia and stenosis: long-term follow-up over 30 years. *J Pediatr Surg.* 2004;39(6):867-71; discussion 867-71. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2004.02.025>