

İzole trakeoözofageal fistül: iki olgunun sunumu ve literatürün gözden geçirilmesi

Esra ÖZÇAKIR*, Nurullah DOĞAN**, Mete KAYA*

*Şevket Yılmaz Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Cerrahisi Kliniği, Bursa

**Özel Bahar Hastanesi, Radyoloji Kliniği, Bursa

Özet

İzole trakeoözofageal fistül, nadir rastlanan bir anomalidir ve trakeoözofageal malformasyonların sadece %4'ünü oluşturur. Beslenme sırasında siyanoz ve boğulma atakları, artmış karın distansiyonu ile birlikte tekrarlayan akciğer enfeksiyonları ile bulgu verir. İzole trakeoözofageal fistül varlığını ortaya çıkarmak için özofagografi, sineözofagografi ve bronkoskopi içeren farklı tanı yöntemleri kullanılmaktadır. Bu çalışmada, sineözofagografi ile tanı konulan iki izole trakeoözofageal fistüllü olgu sunuldu.

Anahtar kelimeler: Trakeoözofageal fistül, sineözofagografi, bronkoskopi

Summary

Isolated tracheoesophageal fistula: A report of two cases and review of the literature

Isolated tracheoesophageal fistula is an infrequent congenital anomaly which is seen in only 4% of tracheo-esophageal malformations. Isolated tracheoesophageal fistula is presented with cyanosis and choking during the feeding, and recurrent chest infections and abdominal distention. Various methods that have been applied to prove the presence of a suspicious isolated tracheoesophageal fistula: contrast esophagography, cine-esophagography and bronchoscopy. In this report, two infants with isolated tracheoesophageal fistula diagnosed by cine-esophagography are presented.

Key words: Tracheoesophageal fistula, cine-esophagography, bronchoscopy

Giriş

Trakeoözofageal anomaliler yaklaşık 3000-5000 doğumda bir görülmektedir. İzole trakeoözofageal fistül (İTÖF) tüm bu anomalilerin %4'ü ile en sık görülen tipler arasında üçüncü sırada yer alır^(16,17). Beslenme sırasında öksürük ve tıkanma ile izole trakeoözofageal fistülden şüphelenilen olguların tanısı, radyolojik ve/veya endoskopik olarak konulur. Tanı gecikmesi önemli solunum sorunlarına neden olabilir, ancak ileri yaşlara kadar tanı konulamayabilir⁽⁷⁾. Torakotomi veya torakoskopik yöntemler çok nadiren gerekli olsa da, konjenital izole trakeoözofageal fistüllerin büyük çoğunluğu servikotomi ile başarılı bir şekilde onarılmaktadır.

Bu yazıda, kliniğimizde tedavi edilen izole trakeoözofageal fistüllü iki olgu, nadir görülmesi ve tanı

zorluğuna dikkat çekilmesi amacıyla literatür gözden geçirilerek sunulmuştur.

Olgu sunumu

Olgu 1: Sağlıklı anneden miadında doğan, doğum öncesi ve sırasında herhangi bir sorunu olmayan 2 aylık kız bebek, doğumdan itibaren beslenme esnasında öksürük atakları ve solunum sıkıntısı yaşaması nedeni ile yapılan tetkiklerinde, sineözofagogramda izole trakeoözofageal fistül tespit edilmesi üzerine (Resim 1) kliniğimize yönlendirildi. Pnomoni tedavisi almakta olan olgunun fizik muayenesinde bilateral kabalaşmış solunum sesleri mevcuttu. Kardiyak ve diğer organ anomalileri yönünden bir sorunu olmayan hasta uygun şartlarda ameliyata hazırlanırken beslenmesi nazogastrik sonda ile sağlandı.

Olgu 2: Doğum öncesi ve sırasında hiçbir sorunu olmayan, sağlıklı anneden doğan 5 aylık erkek bebekte, doğumdan itibaren beslenirken solunum sıkıntısı yaşaması ve geçmeyen öksürüğü nedeni ile iki kez başka merkezde akciğer enfeksiyonu tedavisi yapıl-

Bu çalışma 17-20 Eylül 2014 tarihlerinde Trabzon'da düzenlenen 32. Ulusal Çocuk Cerrahisi kongresinde poster olarak sunulmuştur.

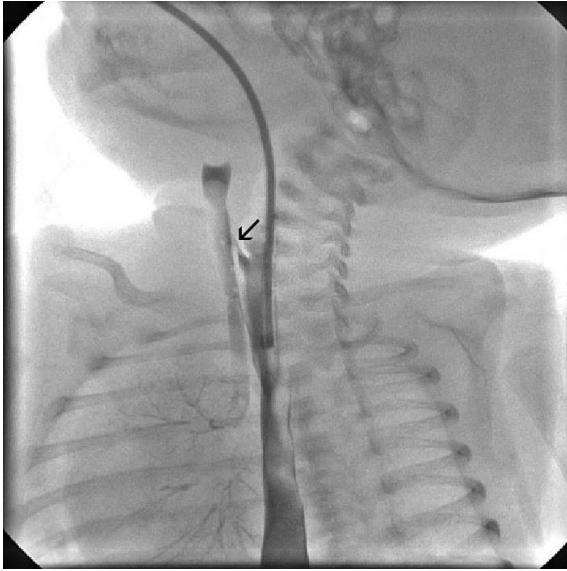
Adres: Doç. Dr. Mete Kaya, Çamlıca Mh. Ahmet Taner Kışlalı Cad. No:57, Park Evleri C-1, Nilüfer-Bursa

Alındığı tarih: 05.12.2014

Kabul tarihi: 04.08.2015

mıştı. Çekilen sineözofagogramda torakoservikal intervertebral aralık hizasında izole trakeoözofageal fistül tesbit edilmesi üzerine hasta kliniğimize yatırıldı. Pnomoni tedavisi düzenlenen hastada diğer sistem anomalileri açısından bir özellik saptanmadı. Bir hafta süreyle beslenmesi nazogastrik sonda ile sağlanan olguda pnomoni tedavisi sonrası ameliyat edildi.

Cerrahi Yöntem: Hastalara anestezi induksiyonundan sonra ilk olarak 2.5 numaralı rijit bronkoskop ile bronkoskopi yapıldı. Her ikisinde de vokal kordların 1.5 cm altında trakea arka duvarında fistül ağzı göz-



Resim 1. Sineözofagografide trakeoözofageal fistülün trasesi ok ile gösterilmiştir.



Resim 2. Bronkoskopi sırasında fistül ağzının görüntüsü.



Resim 3. Ameliyat sırasında trakea (T), askıya alınmış özofagus (Ö) ve fistül (F)'ün görünümü.

lendi (Resim 2). Bronkoskop içinden 3 Fr Fogarty balonlu kateter fistülden özofagusa geçirilerek endoskopiye son verildi. Hastalar supin pozisyonda omuzlar altından yükseltilmiş ve baş sola ve ekstensiyonda iken sağ sternoklaviküler bileşkenin 1 cm üzerinden transvers insizyon ile sağ servikotomi yapıldı. Sternokledomastoid kasının sternal ve klavikular dallarının arasından karotis arter mediale ekarte edilerek ve rekürren laringeal sinir korunarak, trakea ve özofagusa ulaşıldı. Trakeal diseksiyon yapılmadan özofagus naylon tape ile askıya alındı. Fogarty balonu şişirilerek ve ileri geri hareket ettirilerek fistül tespit edildi. Fistül naylon tape ile askıya alınarak insize edildi ve kateter çıkarıldı (Resim 3). Fistül eksize edildi, trakeal taraf 5/0 polypropylene suture, özofageal taraf 5/0 polyglactin suture ile tek tek onarıldı, katlar kapatıldı ve diren yerleştirilmedi.

Olguların nazogastrik tüpleri ameliyat sonrası ikinci gün alındı ve oral anne sütü ile beslenme başlandı. 18 aylık takiplerinde yutma güçlüğü, ses kısıklığı veya fistül nüksü gibi bir komplikasyon gelişmedi.

Tartışma

Trakeoözofageal anomalilerin etyopatolojisinde, embriyolojik dönemin ilk haftalarında ön barsağın proksimalinden gelişen trakea ve özofagusun ayrılma kusuru esas olmakla beraber; çok sayıda genleri ve karmaşık gen-çevre etkileşimlerini içeren heterojen ve çok faktörlü birçok teori ileri sürülmüştür^(16,17).

İzole trakeoözofageal fistül, eskiden H tipi olarak ifade edilirdi, ancak trakeal açıklığın özofagusa göre daha yukarıda olması nedeniyle N tipi olarak da adlandırılmaya başlanmıştır. Olgularımızda trakeal fistül özofagusa göre daha proksimale açılıyordu ve N tipine uygun idi (Resim 2).

İzole trakeoözofageal fistüllü olgularda, tüm hastalarda olmasa da, klinik olarak üç klasik bulguya rastlanır. Bunlar (1) beslenme ile tetiklenen şiddetli, ani, geçici tıkanmalar ve öksürük atakları, (2) trakeadan fistüle ve özofagusa hava geçişi ile karın distansiyonu ve (3) tekrarlayan pnomoni ataklarıdır. Aslında bu bulguların doğumdan sonraki erken dönemlerde de olması nedeniyle öncelikli olarak gastroözofageal reflü ve buna bağlı aspirasyon düşündürülmesi veya trakeomalazi gibi durumlarda da aynı bulguların olması nedeniyle, tanı konulması genellikle ileri yaşlara kadar gecikebilmektedir ^(5,7,14). Olgularımızın her ikisinin öykülerinde tekrarlayan akciğer enfeksiyonları, beslenme sırasında tıkanma ve öksürük atakları mevcuttu, ancak artmış karın şişkinliği bulgusu yoktu.

İzole trakeoözofageal fistüllü olguların %30'unda diğer sistemlere ait anomaliler birlikte görülebilir ^(5,10). Başlıcaları VACTERL Sendromu (Vertebral Anomaliler, Anal Atrezi, Kardiyak Anomaliler, Trakeoözofageal Fistül ve/veya Özofagus Atrezisi, Renal Agenezi ve Ekstremité Anomalileri) veya CHARGE Sendromu (Kolobom, Kalp Defektleri, Koanal Atrezi, Büyüme ve Gelişme Geriliği, Genital Hipoplazi, Kulak Anomalileri/Sağırılık), Goldenhar Sendromu, Özofageal stenoz ve Sindaktilidir ⁽⁷⁾. Olgularımız eşlik eden anomaliler açısından araştırılmıştır, ancak başka bir anomali saptanmamıştır.

Tanıda direkt akciğer grafileri tanı koydurmasa da subsegmental kollapları ve hava dolu mideyi gösterebilir. Kontrastlı radyolojik görüntüleme (özofagografi), daha sonra yeniden izleme imkanı olduğundan özellikle devamlı görüntü kaydı yapılarak alınan sineözofagografiler, değerlidir ⁽¹⁴⁾. Bu işlem, hasta yan veya prone pozisyonda yatırılmış iken özofagus distaline ilerletilmiş kateter geri çekilirken kontrast madde verilmesi ile yapılır (Pull-Back tekniği) ⁽⁵⁾. Fistülün özofagus tarafındaki ağzı hipertrofik mukozaya ile tıkalı olabileceğinden yüksek basınçla kontrast madde verilmesi gerekebilir. Bunun için Kıyan ve arkadaşları tarafından ⁽¹¹⁾ çift balon tekniğini ta-

nımlamıştır. Özofagografi sırasında aspirasyon riskinin göz önünde bulundurulması ve olası aspirasyon durumunda gelişecek kimyasal pnomoniye önlemek için su bazlı kontrast maddelerin kullanılması tavsiye edilir ⁽¹⁴⁾. Diğer yandan izole trakeoözofageal fistül tanısında ince kesitli bilgisayarlı tomografinin üç boyutlu görüntüye dönüştürülmesi ile sanal bronkoskopi ⁽¹²⁾, özofagusdaki hava kabarcıklarının görülmesi ile ultrasonografi ⁽⁹⁾ ve sintigrafinin de ⁽¹³⁾ kullanıldığı bildirilmektedir. Olgularımızın tanısı, klinik olarak şüphelenilmesi üzerine Pull-Back yöntemi ile çekilen sineözofagogram ile konulmuştur.

Bronkoskopi; radyolojik görüntülemelerle tanı konulamayan olgularda, hem fistülün yerinin tespiti ve hem de kateterizasyonu için yapılır. Bronkoskopi torakal 2. vertebranın üst seviyesinde, trakea arka duvarı orta hatta ince damarların radyal olarak fistül noktasından başladığı görülebilir. Aynı seansta yapılacak özofagoskopide, bronkoskopiye göre daha distalde ön duvarda ters v ve yarık şeklinde fistül ağzından özofagusa geçirilmiş kateter görülebilir. Fistül ağzının tıkalı olduğu düşünülen olgularda veya fistülün kateterizasyonu yapılamadığı durumlarda, özofagusun serum fizyolojik ile doldurarak entübasyon tüpünden yapılan yüksek basınçlı havalandırma ile hava kabarcıklarının özofagustan çıkışı özofagoskopi ile görülebileceği bildirilmiştir ⁽¹⁴⁾. Bu işlem için endoskop olarak sistoskopi cihazının kullanılabilmesi de bildirilmiştir. Bronkoskopinin fleksibl aletler ile hatta laringeal maskenin içinden de yapılabileceği bildirilmiştir ^(1,8). Eşlik eden kardiyak sorunlar gibi uzun süre entübasyon gerektiren durumlarda endoskopik olarak tanı konulamayabileceği bildirilmiştir ⁽⁵⁾.

Fistülün kanülasyonu ile, fistülün ameliyat esnasında bulunmasını kolaylaştırabilir, ayrıca balonun şişirilerek yukarıya doğru çekilmesi; aşağı düzeydeki fistülün servikal bölgeye çekilmesini sağlar ^(1,2,14). Endoskopi aynı zamanda laringeal klef, trakeal stenoz ve trakeomalazi gibi anomalilerin tanısında da yararlıdır. Olgularımızın bronkoskopisinde fistüller vokal kordların hemen altında trakea arka duvarda olduğu gözlemlendi, fistülden balonlu kateter ile kateterizasyon yapılması, servikal yolla ameliyat esnasında fistülün kolayca bulunmasını sağlamıştır.

İzole trakeoözofageal fistüllü olguların büyük çoğunluğunda, fistülün sağ servikotomi ile rekürren larin-

geal sinir korunarak ve duktus torasikus yaralanma riski olmadan kolayca onarılabileceği, diğer yandan az seride özellikle özofagus trakeanın hafif solunda ise soldan da yapılabileceği bildirilmiştir^(10,15). Torakal 2. vertebranın üzerindeki tüm fistüllere bu yolla ulaşılabileceği, daha aşağı yerleşimli olanların ise (%20) torakal (açık veya endoskopik olarak) yolla onarılabileceği bildirilmiştir^(3,15,18). Ancak Crabbe ve ark.⁽⁶⁾ karina düzeyindeki fistüllerin dahi servikal yoldan onarılabileceğini bildirmişlerdir. Fistül onarımında endoskopik elektrokoter/laser kullanımı tarif edilmiştir, ancak kullanımı yaygın değildir⁽⁴⁾. Onarımda trakeal taraf güdük bırakılmaksızın çok emilmeyen veya geç emilen, özofageal taraf ise emilebilen sütürler ile onarılır. Olgularımızda fistüllere sağ servikal yolla ulaşıldı ve trakea disseke edilmeden rekürren laringeal sinir görülerek özofagus askıya alındı. Özofagus distaline yerleştirilen Fogarty kateteri balonu şişirilerek geri çekildi, gereksiz disseksiyonlardan kaçınılarak doğrudan fistül bulundu ve fistül askıya alınarak eksizye edildi.

İzole trakeoözofageal fistül cerrahisinde komplikasyonlar daha çok torasik onarımlarda görüldüğü bildirilmesine rağmen Parolini ve ark.⁽¹⁵⁾ farklı yaklaşımlar arasında komplikasyon yönünden bir fark olmadığını bildirmişlerdir. Rekürren laringeal sinir yaralanması %15-50 oranında bildirilmektedir⁽⁵⁾, ancak bunların birçoğunda geçici ses kısıklığı görülmüştür. Olgularımızda herhangi bir komplikasyon görülmemiştir.

Sonuç olarak, izole trakeoözofageal fistül tanısında sineözofagoram değerlidir, ancak bronkoskopi hem fistülün görülmesi, hem de kataterizasyonu için ameliyata başlarken yapılmalıdır. Fistül kateter sayesinde kolayca bulunur, aynı zamanda balonunun şişirilmesi ile aşağı seviyedeki fistüller servikal bölgeye çekilerek kolayca onarılabilir.

Kaynaklar

1. Amat F, Heraud MC, Scheye T, et al. Flexible bronchoscopic cannulation of an isolated H-type tracheoesophageal fistula in a newborn. *J Pediatr Surg* 2012;47:e9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2012.05.012>
2. Atzori P, Iacobelli BD, Bottero S. Preoperative tracheobronchoscopy in newborns with esophageal atresia: does it matter? *J Pediatr Surg* 2006;41:1054. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2006.01.074>
3. Aziz GA, Schier F. Thoracoscopic Iigation of a tracheoesophageal H-type fistula in a newborn. *J Pediatr Surg* 2005;40:e35. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2005.03.037>
4. Bhatnagar V, Lal R, Srinivas M, et al. Endoscopic treatment of tracheoesophageal fistula using electrocautery and the Nd:YAG laser. *J Pediatr Surg* 1999;34:464. [http://dx.doi.org/10.1016/S0022-3468\(99\)90500-6](http://dx.doi.org/10.1016/S0022-3468(99)90500-6)
5. Brookes JT, Smith MC, Smith RJ, et al. H-type congenital tracheoesophageal fistula: University Of Iowa experience 1985 to 2005. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2007;116:363. <http://dx.doi.org/10.1177/000348940711600508>
6. Crabbe DC, Kiely EM, Drake DP, et al. Management of the isolated congenital tracheo-oesophageal fistula. *Eur J Pediatr Surg* 1996;6:67. <http://dx.doi.org/10.1055/s-2008-1066473>
7. De Schutter I, Vermeulen F, De Wachter E, et al. Isolated tracheoesophageal fistula in a 10-year-old girl. *Eur J Pediatr* 2007;166:911. <http://dx.doi.org/10.1007/s00431-006-0336-4>
8. Deanovic D, Gerber AC, Dodge-Khatami A, et al. Tracheoscopy assisted repair of tracheo-esophageal fistula (TARTEF): a 10-years experience. *Paediatr Anesth* 2007;17:557. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1460-9592.2006.02147.x>
9. Gassner I, Geley TE. Sonographic evaluation of oesophageal atresia and tracheo-oesophageal fistula. *Pediatr Radiol* 2005;35:159. <http://dx.doi.org/10.1007/s00247-004-1329-y>
10. Karnak I, Senocak ME, Hicsonmez A et al. The diagnosis and treatment of H-type tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 1997;32:1670.
11. Kiyani G, Dagli TE, Tugtepe H, et al. Double balloon esophageal catheter for diagnosis of tracheoesophageal fistula. *Eur Radiol* 2003;13:397.
12. Le SD, Lam WW, Tam PK, et al. H-type tracheoesophageal fistula: appearance on three-dimensional computed tomography and virtual bronchoscopy. *Pediatr Surg Int* 2001;17:642. <http://dx.doi.org/10.1007/s003830100012>
13. Lee DY, Kim KM, Kim JS. H-type tracheoesophageal fistula detected by radionuclide salivagram. *Nucl Med Mol Imaging* 2012;46:227. <http://dx.doi.org/10.1007/s13139-012-0148-6>
14. Ng J, Antao B, Bartram J, et al. Diagnostic difficulties in the management of H-type tracheoesophageal fistula. *Acta Radiol* 2006;47:801. <http://dx.doi.org/10.1080/02841850600854902>
15. Parolini F, Morandi A, Macchini F, et al. Cervical/thoracotomy/thoracoscopic approaches for H-type congenital tracheo-esophageal fistula: a systematic review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2014;78:985. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2014.04.011>
16. Rothenberg SS. Esophageal atresia and tracheoesophageal fistula malformations, in G.W. Holcomb III GW, Murphy JP, Ostlie DJ (eds): *Aschraft's Pediatric Surgery*, 6th ed., Philadelphia. Elsevier 2014, p:365.
17. Smith N. Oesophageal atresia and tracheo-oesophageal fistula. *Early Hum Dev* 2014;90:947. <http://dx.doi.org/10.1016/j.earlhumdev.2014.09.012>
18. Yazbeck S, Dubuc M. Congenital tracheoesophageal fistula without esophageal atresia. *Can J Surg* 1983;26:239.