

Konjenital Şilotoraksı Olan Bir Yenidoğanda Oktreotid ile Tedavi

Erdal KURNAZ¹, Hüseyin YAKINDA², Mahmut ASLAN², Gülsüm DEMİRTAŞ², Ramazan ÖZDEMİR¹, Ahmet KARADAĞ¹

¹İnönü Üniversitesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı, Neonatoloji Bilim Dalı, Malatya, Türkiye

²İnönü Üniversitesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı, Malatya, Türkiye

ÖZET

Konjenital şilotoraks, yenidoğanda plevral efüzyonun nadir görülen bir nedenidir. Erkeklerde sıklığı iki kat fazladır. Görülme sıklığı 1/10.000-15.000'dir. Konjenital şilotoraksın etiyolojisi halen tartışmalıdır. Tanısı plevral efüzyonun tanı ve tedavi amaçlı boşaltılarak analiz edilmesi ile mümkündür. Yenidoğan döneminde şilotoraks tedavisinde konservatif yaklaşımlar cerrahi yöntemler kullanılmaktadır. Günümüzde konservatif yaklaşımlarla sonuç alınamayan olgularda, oktreotid tedavisi ile başarılı sonuçlar alındığı bildirilmektedir. Konjenital şilotoraksın prognozu sıklıkla iyi seyretmekte, ancak hidrops fetalis olgularında mortalite oranı artmaktadır. Bu yazıda ve otolog kan transfüzyonuna yanıt alınmayıp oktreotid ile tedavi edilen, hidrops fetalisle bağlı bir konjenital şilotoraks olgusu sunulmuştur.

Anahtar Sözcükler: Yenidoğan, Konjenital şilotoraks, Hidrops fetalis, Oktreotid

ABSTRACT

Octreotide Treatment in a Newborn With Congenital Chylothorax

Congenital chylothorax is a rare cause of pleural effusion in the newborn infant. It occurs twice as often in males, and the incidence has been reported as 1/10.000-15.000. There is controversy about the etiology of congenital chylothorax. The diagnosis can be made after analysis of the pleural fluid drained by thoracentesis or chest tube placement. During neonatal period, chylothorax treatment is composed of conservative and surgical therapies. Nowadays, for cases among which conservative therapies fail, treatment with octreotide has been reported to be beneficial with promising results. The prognosis of congenital chylothorax is good but in cases of hydrops fetalis, mortality is increased. A neonate with congenital chylothorax due to hydrops fetalis who was successfully treated with octreotide after failure of autologous blood therapy is presented in this case report.

Key words: Newborn, Congenital chylothorax, Hydrops fetalis, Octreotide

Plevral boşlukta lenfatik sıvının toplanması şilotoraks olarak adlandırılır. Konjenital şilotoraks ender görülen bir durum olmasına rağmen yenidoğan döneminde plevral efüzyonun en sık görülen nedenidir (1). İlk kez Pisek ve Linner tarafından tanımlanmıştır (2). Konjenital veya edinsel, tek veya çift taraflı olabilir. Konjenital şilotoraks, lenfatik sistem anomalileri (lenfanjiyomatosis, lenfanjektazi), doğumsal kalp hastalığı, mediastinal malignansiler, kromozomal anomalileri (Trizomi 21, Turner ve Noonan sendromları) ve H tipi trakeoözofageal fistül varlığı sonucu gelişebilir ancak çoğunlukla neden saptanamaz ve idiyopatik olarak değerlendirilir (3). Doğum travmasına bağlı majör lenf kanallarının kalıcı yırtılması da diğer bir neden olabilmektedir (4).

Tanı intrauterin dönemde ultrason ile, postnatal dönemde ise radyografi ile tespit edilerek plevral sıvı değerlendirilmesi ile konur. Normal bir solunum sağlamak için göğüs tüpü veya torasentez gerekebilir (5). Şilotoraks tanısı klasik plevral sıvı analizi ile belirlenen ve 1,1 mmol/L (110 mg/dL) veya daha fazla trigliserid içeriği ve hücre sayımında en az %80'i lenfosit olan, mililitrede 1000 veya daha fazla hücre tespit edilmesi

ile konur. Konjenital şilotoraksın optimal tedavisi henüz belirlenmemiştir ancak plevral drenaj ve cerrahi girişimler ile birlikte konservatif tedavi yapılmaktadır (6). Konjenital şilotoraksın konservatif tedavisi plevral drenaj, enteral beslenmenin kısıtlanması, orta zincirli trigliserid (MCT) ve total parenteral nutrisyon (TPN) kullanımını içermektedir (7). Dirençli vakalarda ise duktus torasikus ligasyonu, pleuro-peritoneal şant veya plörodesis gibi cerrahi yöntemler kullanılmaktadır (8). Son dönemlerde yapılan çalışmalarda sürekli oktreotid infüzyonu konjenital şilotoraksın tedavisinde başarılı olduğu raporlanmıştır (6).

OLGU SUNUMU

Sağlıklı ve eşiyile akrabalığı olmayan 22 yaşındaki annenin ikinci gebeliğinden ikinci canlı doğum olarak 33 haftalık, 2300 gr ağırlığında normal kendiliğinden vajinal yolla doğan kız bebek, solunum sıkıntısı nedeniyle yenidoğan yoğun bakım birimine yatırıldı. Hasta doğar doğmaz ciddi solunum sıkıntısı nedeni ile entübe edildi, mekanik ventilatöre bağlandı. Postnatal yapılan toraks ultrasonografide bilateral yaygın plevral efüzyon

¹ Yazışma Adresi: Dr. Erdal KURNAZ, İnönü Üniversitesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı, Neonatoloji Bilim Dalı, Malatya, Türkiye
e-mail: erdalkurnaz44@gmail.com

izlendi, batin ultrasonografisinde minimal serbest sıvı izlendi ve göğüs radyografisinde bilateral masif plevral sıvı görüldü. Hastaya bilateral toraks tüpü takıldı (Resim 1).

Hastanın fizik muayenesinde ciddi solunum sıkıntısı, jeneralize ödem ve kardiyak 1/6 sistolik üfürümü mevcuttu. Hastada herhangi dismorfik bir bulgu yoktu. Hidrops düşünülen hastanın izleminde solunum sıkıntısının artması üzerine sürfaktan verildi. Ampirik olarak antibiyotik tedavisi başlandı. Yatışının birinci gününde hastaya TPN ve ikinci gününde minimal enteral beslenme verildi.

Hastanın bakılan renal ve transfontanel ultrasonografisinde herhangi bir patolojiye rastlanmadı. Yapılan ekokardiyogramda patent foramen ovale (PFO) dışında önemli bir bulgu yoktu. Gönderilen viral serolojisi (rubella, toksoplazma, herpes simpleks, sitomegalovirüs, parvovirüs) negatif olarak sonuçlandı. Periferik kandan çalışılan kromozom analizi normal sonuçlandı. Kültürlerinde mikroorganizma üremesi olmadı. Yatışının ikinci gününde toraks tüpünden süt kıvamında sıvı geldiği görülmesi üzerine sıvının laboratuvar analizi yapıldı, yapılan incelemede trigliserit 403 mg/dl, kolesterol 39 mg/dl, protein 0,8 g/dl, laktat dehidrogenaz 101 U/L, lökosit sayısı 1000/ml ve bunun %84'ü lenfosit olarak saptandı. Gelen sıvının içeriği göz önüne alınarak şilotoraks tanısı konuldu. Hasta üçüncü gününde ekstübe edilerek nazal CPAP' a alındı. Hastanın plevral sıvı kültürü steril olarak sonuçlandı. Yatışının dördüncü gününde konservatif tedaviye rağmen şilöz sıvı drenajı masif devam ettiği için hastaya intraplevral otolog kan transfüzyonu yapıldı. Hastaya bir yandan eritrosit süspansiyonu verilirken diğer yandan hastanın periferik veninden her bir hemitoraks için farklı seanslarda 10 ml kan alınıp toraks tüpünden intraplevral olarak enjekte edildi ve toraks tüpü klemlendi. Bir saat klepli kaldıktan sonra klemp açıldı. Hastaya intraplevral otolog kan transfüzyonu yapılmasına rağmen şilöz drenaj miktarında herhangi bir azalma olmadı. Hastaya gün aşırı üç kez otolog kan transfüzyonu yapılmasına rağmen şilotoraksında azalma olmadı. Yatışının onuncu gününde genel durum bozukluğu ve sepsis tablosu gelişti. Hastanın antibiyoterapisi ampirik olarak teikoplanin-meropenem şeklinde değiştirildi.

İzlemede hastanın genel durumunda düzelmeye başlandı, gönderilen kültürler steril olarak sonuçlandı. Toraks tüpünden şilöz sıvı drenajı masif olarak devam eden hastaya yatışının onüçüncü gününde 3 µg/kg/saat dozundan oktreotid infüzyonu başlandı ve günlük 1 µg/kg/saat dozunda artış yapılarak 7 µg/kg/saat dozuna kadar çıkıldı ve bu dozda devam edildi. Yatışının yirminci gününde tam enteral beslenmeye geçildi ve TPN kademeli olarak azaltılıp kesildi. Yatışının otuzüçüncü gününde bilateral toraks tüpünden sıvı drenajı azalmaya başladı ve izlemede toraks tüpünden sıvı drenajı kesildi, göğüs radyogramında plevral efüzyonun düzeldiği görüldü ve oktreotid infüzyonu hastanın yatışının kırkdördüncü gününde ke-

sildi. Plevral efüzyonun tekrarlamadığı görülünce toraks tüpleri çekildi. Enteral beslenmesi tam olan, solunum sıkıntısı olmayan hasta yatışının ellidördüncü gününde taburcu edildi.



Resim 1. Hastanın ikili toraks tüpü takıldıktan sonraki göğüs radyografisi

TARTIŞMA

Konjenital şilotoraksın optimal tedavisi henüz belirlenmemiştir ancak plevral drenaj ve cerrahi girişimler ile birlikte konservatif tedavi yapılmaktadır (6). Konjenital şilotoraksın konservatif tedavisi plevral drenaj, enteral beslenmenin kısıtlanması, MCT ve TPN kullanımını içermektedir (7). Genellikle efüzyon 2-3 haftada ortadan kalkmazsa, TPN başlanması ile beraber enteral dinlendirme yapılabilir. Bazı çalışmalarda ise intraplevral otolog kan transfüzyonunun başarılı tedavisi bildirilmektedir. Robinson, ilk kez intraplevral otolog kan transfüzyonunu persistan seyreden spontan pnömotoraksın olgularda yapmıştır (9). Daha sonra Dumire ve ark. (10) pulmoner lobektomi sonrası başarılı otolog kan transfüzyonunu bildirmişlerdir. Akçakuş ve ark. (11) da konjenital pulmoner lenfanjektazili bir hastada intraplevral otolog kan transfüzyonu yapmışlardır.

Olgumuzda plevral drenaj, TPN desteği ve enteral dinlendirme gibi konservatif tedavilerden yanıt alınmayınca ilk seçenek olarak otolog kan transfüzyonu yapıldı. Ancak otolog kan transfüzyonu sonrası şilotoraks düzeyinde herhangi bir değişiklik olmadı. Son yıllarda bir somatostatin analogu olan oktreotid, şilotoraksın konservatif tedavisinde başka bir seçenek haline gelmiştir (12). İntraplevral otolog kan transfüzyonundan fayda görmeyen, masif efüzyonu devam eden hastaya oktreotid tedavisi başlandı. Şilotoraksı tamamen kaybolan hastanın tedavisinin otuzbirinci gününde oktreotid kesildi. Oktreotid 3 µg/kg/saat dozunda infüzyon şeklinde başlanıp, günlük dozda 1 µg/kg/saat artış yapılarak 7 µg/kg/saat dozuna kadar çıkılabilmektedir. Birçok olguda oktreotidin 10 µg/kg/saat dozuna kadar çıkıldığı bildirilmektedir. Ancak olgumuzda oktreotid dozu 7 µg/kg/saat'in üzerine çıkarılmadı. Son yıllarda oktreotidin 10 µg/kg/saat sürekli infüzyonu; cerrahi tedaviye alternatif olarak gösterilmekte ve vaka sunumları şeklinde olgular bildirilmektedir (6,8). An-

çak tüm tedavi seçeneklerine rağmen dirençli olan plevral effüzyonlarda; kollateral lenf sistemi gelişene kadar mekanik ventilasyonla solunum desteği ve tekrarlayıcı torasentez uygulamaları gerekebilmektedir (13).

Cerrahi uygulama, konservatif tedaviye yanıt vermeyen persistan şilotoraks durumlarında uygulanmaktadır. Konjenital şilotoraks tedavisinde torasik kanal ligasyonu 1957'de Randolph ve Gross tarafından başarı ile uygulanmıştır (14).

Şilotoraksın prognozu genellikle iyi seyirlidir. Ancak prematürite, eşlik eden pulmoner hipoplazinin derecesi ve hidropsun varlığı mortaliteyi arttıran nedenler olarak belirtilmektedir (6, 15). Perinatal mortalite %15-30'dur. Günümüzde bazı merkezler tarafından, antenatal dönemde plevral drenaj yapılarak akciğer hipoplazisinin önlenebileceği bildirilmektedir (16).

KAYNAKLAR

1. Brissaud O, Desfrere L, Mohsen R, Fayon M, Demarquez JL. Congenital idiopathic chylothorax in neonates: chemical pleurodesis with povidone-iodine (Betadine). Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed 2003; 88: 531-3.
2. Stewart CA, Linner HP. Chylothorax in the newborn infant, report of a case. JD Child 1926; 31: 654-6.
3. Das A, Shah PS. Octreotide for the treatment of chylothorax in neonates. Cochrane Database Syst Rev 2010; 9: CD006388.
4. Van Aerde J, Campbell AN, Smyth JA. Spontaneous chylothorax in newborn. Am J Dis Child 1984; 18: 961-4.
5. Lahmiti S, Elhoudzi J, Baki S, Aboussad A. Congenital chylothorax. Scientific World Journal 2009; 9: 431-4.
6. Bulbul A, Okan F, Nuhoglu A. Idiopathic congenital chylothorax presented with severe hydrops and treated with octreotide in term newborn. J Matern Fetal Neonatal Med 2009; 22: 1197-200.
7. Khatami SF, Parvaresh P. Successful Treatment of Neonatal Chylothorax with Octreotide. Indian J Pediatr 2011; 78: 1412-4.
8. Paramés F, Freitas I, Fragata J, Trigo C, Pinto MF. Octreotide additional conservative therapy for postoperative chylothorax in congenital heart disease. Rev Port Cardiol 2009; 28: 799-807.
9. Robinson CL. Autologous blood for pleurodesis in recurrent and chronic spontaneous pneumothorax. Can J Surg 1987; 30: 428-9.
10. Dumire R, Crabbe MM, Mappin FG, Fontenelle LJ. Autologous 'blood patch' pleurodesis for persistent pulmonary air leak. Chest 1992; 101: 64-6.
11. Akcokus M, Koklu E, Bilgin M. et al. Congenital pulmonary lymphangiectasia in a newborn: a response to autologous blood therapy. Neonatology 2007; 91: 256-9.
12. Altuncu, E, Akman, I, Kıyan, G, et al. Report of three cases: congenital chylothorax and treatment modalities. Turk J Pediatr 2007; 49: 418-21.
13. Chen CH, Chen TH, Kuo SJ et al. Genetic evaluation and management of fetal chylothorax: review and insights from a case of Noonan syndrome. Lymphology 2009; 42: 134-8.
14. Randolph J, Gross R. Congenital chylothorax. Arch Surg 1957; 74: 405-19.
15. Özkan H, Ay N, Özaksoy D, et al. Congenital chylothorax. Turk J Pediatr 1996; 38: 113-7.
16. Hagay Z, Reece A, Roberts A, Hobbins JC. Isolated fetal pleural effusion: a prenatal management dilemma. Obstet Gynecol 1993; 81: 147-52.

Gönderilme Tarihi: 26.10.2012