

Olgu Sunumu

Bilateral İkinci Brankial Ark Fistülünde Radyolojik Görüntüleme: Vaka Sunumu

Sertaç DÜZER^{a1}, Cahit POLAT¹, Abdulvahap AKYİĞİT¹, Özkan ALATAŞ², Öner SAKALLIOĞLU¹

¹Elazığ Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Kulak Burun Boğaz Kliniği, Elazığ, Türkiye

²Elazığ Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Radyoloji Kliniği, Elazığ, Türkiye

ÖZET

Brankial anomaliler, brankial yarıklar olarak adlandırılan ektodermin invaginasyonları ile bölümlere ayrılan altı mezodermal arkın oluşturduğu brankial apparatusun gelişimsel anomalileridir. İkinci brankial ark anomalileri en yaygın brankial anomalilerdir. Cinsiyet yatkınlığı bulunmamaktadır. Tanıları klinik olarak konur. Biz bu makalede 16 yaşında bayan hastada tespit edilen nadir görülen bilateral ikinci brankial ark fistülü olgusunda görüntülemenin önemini vurguladık.

Anahtar Kelimeler: Brankial, fistül, bilateral, görüntüleme

ABSTRACT

Radiology Imaging of Bilateral Second Branchial Arch Fistula: Case Report

Branchial anomalies are the developmental anomalies of the branchial apparatus which consist of six mesodermal arches separated by invaginations of the ectoderm called as clefts. Second branchial arches anomalies are the most common branchial anomalies. There is no gender predilection. These are clinically diagnosed. We present a case of rare bilateral branchial fistula in a young lady with a distinctive emphasis on imaging.

Key words: Branchial, fistula, bilateral, imaging

Major baş boyun oluşumlarını meydana getiren brankial yapılar fetal gelişimin 4. ve 6. haftaları arasında gelişirler. Bu yapılardan brankial arklar, nöral krest hücreleri ve lateral mezodermden gelişir. Beş adet ektodermal yarıklar ve beş adet endodermal brankial kese bu iki yapının ara yüzünde bulunan bir membranla brankial arkları altıya ayırır. İkinci brankial ark hızlı bir gelişim göstererek ikinci, üçüncü ve dördüncü brankial yarıkları örter. Ve bu yarıklar geçici boşluk halini alırlar. Bu boşluğa His'in servikal sinüsü denir. Eğer bu boşluklar ortadan kalkmazsa brankial yarıklar anomalileri olarak karşımıza çıkarlar (1). Brankial yarıklar anomalileri dört tipe ayrılır. %95 ile en sık ikinci brankial yarıklar anomalisi görülmektedir (2). İkinci brankial yarıklar anomalilerinin en az %75'i kistlerdir. %25 kadarını ise sinüs ve fistüller oluşturur (3).

Çocuklarda boyun kitlelerinin yaklaşık %20'si brankial yarıklar kist ve sinüsleridir (4). Vakaların sadece %1'i bilateral olup sağ veya sol yatkınlığı bulunmamaktadır (5). Cinsiyet yatkınlığı da saptanmamıştır (6).

Konjenital servikal anomaliler çocuk ve erişkin baş boyun kitleli hastaların ayırıcı tanısında düşünülmelidir (7). 420 olguluk bir seride konjenital boyun kitleleri içinde brankial kistler %15,9 olarak saptanırken (8), yine 481 olguluk başka bir seride konjenital boyun

kitleleri arasında brankial kistler %27 oranında görülmüştür (9). Preoperatif tanıda klinik ve radyolojik bulgular lezyonun karakteristiğini ortaya koymada önemlidir. Ultrasonografi benign, kistik bir kitlenin tanısında ilk seçilecek görüntüleme metodudur (10). Ultrasonografide iyi sınırlı, hipoekoik veya anekoik, septasız kitle brankial kist düşündürmektedir. Dopler ultrasonografide intralezyonel vaskülarizasyon saptanmaz (11). MR inceleme de cerrahiden önce değerlendirilmelidir. Bu patolojide T1 ağırlıklı sekanslarda hipointens T2 ağırlıklı sekanslarda hiperintens kistik lezyon saptanır (12). Ayrıca brankial yarıklar anomalilerinin anatomik seyri önemli derecede varyasyon olması ek görüntüleme yöntemlerinin gerekliliği sonucunu doğurmaktadır. Bu yüzden brankial anomalilerde doğru sınıflama ve cerrahi planlama için ek görüntüleme yöntemlerine ihtiyaç duyulabilir (13).

Bu makalede 16 yaşında bayan hastada tespit edilen bilateral ikinci brankial ark fistülü olgusunda görüntülemenin tanı ve tedavideki rolü literatür bilgileri ile tartışıldı.

VAKA SUNUMU

On altı yaşında kız hasta polikliniğimize boyunda sağ tarafta sık olarak akıntı, ağrı, kızarıklık şikayetleri ile başvurdu. Yapılan muayenesinde boyunun sol tarafında da fistül ağzı olduğu görüldü (Resim 1).

^aYazışma Adresi: Dr. Sertaç DÜZER, Elazığ Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Kulak Burun Boğaz Kliniği, Elazığ, Türkiye
Tel: 0535 748 42 70
Geliş Tarihi/ Received: 13.08.2015

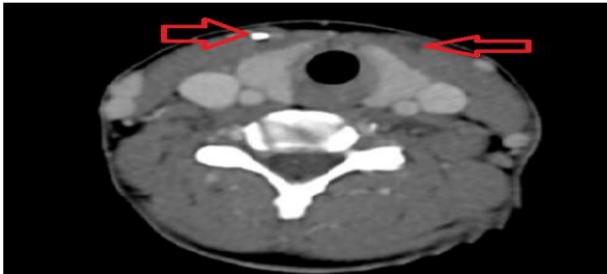
e-mail: sertacaduzer@myynet.com
Kabul Tarihi/Accepted: 09.11.2015



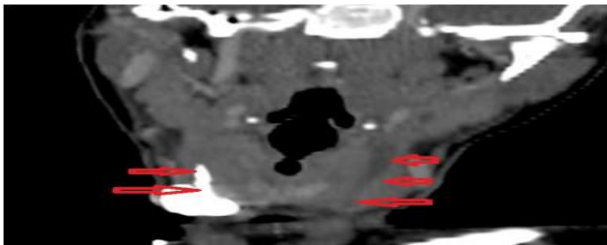
Resim 1. Bilateral brankial fistül ağzı

Hastadan alınan anamnezde zaman zaman buradan da akıntı olmakla birlikte şişlik ve kızarıklık hiç oluşmadığını söyledi. Hastanın aile hikayesinde özellik yoktu. Fistül traktlarına yapılan hafif palpasyonla fistül ağızlarından mukoid akıntı geldiği görüldü. Hastanın öncelikle sağ taraftaki fistül ağzı punktum dilatörü ile genişleterek buradan spinal iğne ile kontrast madde verildi. Hastanın bilgisayarlı tomografi sinogram görüntüleri alındı (Resim 2,3).

Bilgisayarlı tomografi görüntüsünde fistül traktının belirgin olarak saptanması üzerine tanı doğrulanmış oldu. Hasta bilgilendirilerek ve onamı alınarak cerrahi tedaviye geçildi. Genel anestezi altında sinüs ağızından metilen mavisi verilerek sinüs traktının daha belirgin olması sağlandı. Fistül ağzı çevresine yapılan oval insizyonla fistül traktı çevresinde subplatizmal plana geçildi. Fistül traktı bu planda sternokleidomastoid (SKM) kas ön kenarı boyunca takip edilerek yukarıda hyoid kemik düzeyinde daha geniş ikinci bir insizyon yapıldı (Resim 4).

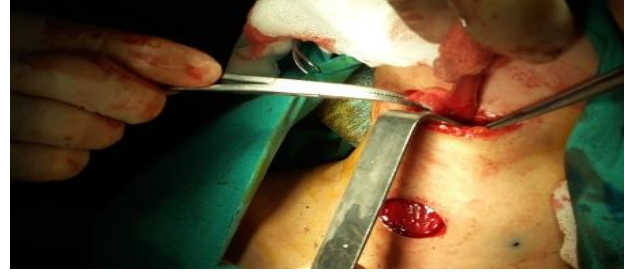


Resim 2. Aksiyal bilgisayarlı tomografi sinogram görüntüsü



Resim 3. Koronal bilgisayarlı tomografi sinogram görüntüsü

Geçirilen enfeksiyonlar nedeniyle fistül traktı kısmen oblitere olmuştu. Bu bölgedeki diseksiyon sonrası fistül traktının karotis kılıfının ön tarafında farengeal duvar yakınında sonlandığı görüldü (Resim 5). Bu bölgeye torba sütür atılarak eksizyon tamamlandı (Resim 6). Hastanın postoperatif onördüncü ayında herhangi bir problem saptanmadı.



Resim 4. Eksizyon sırasında yapılan iki adet insizyon görülürken



Resim 5. Fistül farengeal duvar yakınında sonlanmaktadır



Resim 6. Eksizyon sonucu elde edilen fistül traktı spesmeni

TARTIŞMA

Brankial yapıları ilk tanımlayan Von Baer olup, patolojilerini brankial kist olarak tanımlayan Ascherson'dur (14). Brankial anomaliler kistler, sinüsler ve fistüller olmak üzere üç değişik şekilde görülmektedir. Kistler, sinüs ve fistüllerin yolu boyunca herhangi bir yerde görülebilirler (15). Kistler (%80.8), fistüllerden (%19.2) daha yaygındır (2). 239 serilik bir çalışmada kistlerin sinüs ve fistüllere oranını 2:1 vermiştir. Fistül ve sinüsler arasında eksternal drenajlı sinüsler %50, komplet fistüller %39 ve internal drenajlı sinüsler %11 olarak raporlamıştır (16).

Brankial anomaliler herhangi bir yaşta ortaya çıkabilmekte birlikte en sık birinci ve ikinci dekadlarda saptanır. Ve komplet fistüllü hastaların %6'sında aile hikayesi pozitiftir (17). Brankial yarı anomalileri dört tiptir. En sık görülen tipi ikinci brankial yarı anomalileridir (2). Bailey (18) ikinci brankial yarı anomalilerini yerleşim yerlerine göre dört alt tipe ayırmıştır. Tip 1'de lezyon SKM kas ön kenarı boyunca karotid kılıfına değmeden ilerler. Tip 2 en sık görülen tip olup, lezyon büyük damarlarla temas halinde SKM kas ön ve medial derininde karotid kılıfın ön veya arkasında yerleşimlidir. Tip 3'de fistül traktı internal ve eksternal karotid arterlerin arasından farinkse uzanır. Tip 4'te patoloji tonsiller fossa düzeyinde büyük damarların medialinde farengeal duvarın yanında uzanır.

İkinci brankial yarık anomalileri daha çok alt 1/3 bölümde olmak üzere SKM kas ön sınırı boyunca görülürler (4). En sık semptomlar kitle (%80), ağrı (%30), aralıklı olarak şişlikte artış (%20), infeksiyon (%15) ve bası semptomları (%7) olarak görülmektedir. Palpasyonda %70 kistik %30 solid kitle saptanır (19). Özellikle birinci ve ikinci brankial arklardan gelişen yapıların anomalileriyle birlikte iletim veya sensörinöral tipte işitme kaybı patolojileride saptanabilmektedir (17). Brankial anomalilerin iç duvarları respiratuar veya skuamöz epitelle döşelidir. Kistler sıklıkla skuamöz epitelle, sinüs ve fistüller ise silialı kolumnar epitelle döşelidir (20). Ani belirme ve büyümeler üst solunum yolu enfeksiyonu ve travmalara sekonder olmaktadır (21,22).

Preoperatif tanıda kitlenin klinik görünümüne ek yapılan ultrasonografide iyi sınırlı, ince duvarlı, çevre yapıları komprese eden hipo-anekoik kitle olarak görülür (23). Bilgisayarlı tomografide tipik olarak iyi sınırlı, komplikasyon gelişmediğinde ince duvarlı uniform hipodens kistik kitle saptanır (24). Manyetik rezonans görüntülemeye kistin derin yayılımı daha iyi tanımlar. Kist içeriği T1 ağırlıklı sekanslarda hipo-intense, T2 ağırlıklı sekanslarda hiperintense olarak değerlendirilir. İnflamatuar hadiselerde kist duvarı

kalınlaşarak periferik kontrastlanmada artış görülmektedir (12).

Brankial yarık anomalilerinin anatomik seyrinde önemli derecede varyasyon olması ek görüntüleme yöntemlerinin gerekliliği sonucunu doğurmaktadır (13). Preoperatif çalışmada cerrahi planlamaya yardımcı olacak kontrast madde ile yapılan sinogramlar traktın uzanımını göstererek sinüs ve fistül ayrımını yaparak rekürrensleri azaltmada faydalı olmaktadır (22). Cerrahi tedavide kistin ve fistülün traktıyla birlikte tam olarak eksizyonu nüksleri azaltmada önemlidir (25). Bu sebeplerle cerrahın lezyonun yayılımını ve traktın yönünü tam olarak değerlendirmesini sağlayan floroskopik ve bilgisayarlı tomografi fistülografi kesişim tanı ve tedavi yönlendirmesi yaparak cerrahi komplikasyon ve nükslerin minimalizasyonuna yardımcı olabilir (13).

İkinci brankial ark anomalileri sıklıkla birinci ve ikinci dekatlarda tanı almaktadır. Tanıda klinik muayene önemli yer tutmakla birlikte görüntüleme hem cerrahi açıdan yol gösterici olmakta hem de beraberinde olabilecek ek anomalilerin tespitini sağlayabilmektedir. Kontrastlı incelemeler görüntülemenin klinik değerini arttırarak komplikasyon ve nükslerde azalma sağlamaktadır.

KAYNAKLAR

- Mandell DL. Head and neck anomalies related to the branchial apparatus. *Otolaryngol Clin North Am* 2000; 33: 1309-32.
- Ang AH, Pang KP, Tan LK. Complete branchial fistula. Case report and review of the literature. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2001; 110: 1077-9.
- Telander RL, Filston HC. Review of head and neck lesions in infancy and childhood. *Surg Clin North Am* 1992; 72: 1429-47.
- Waldhausen JH. Branchial cleft and arch anomalies in children. *Semin Pediatr Surg* 2006; 15: 64-9.
- Doshi J, Anari S. Branchial cyst side predilection: fact or fiction? *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2007; 116: 112-4.
- Faerber EN, Swartz JD. Imaging of neck masses in infants and children. *Crit Rev Diagn Imaging* 1991; 31: 283-314.
- Acierno SP, Waldhausen JH. Congenital cervical cysts, sinuses and fistulae. *Otolaryngol Clin North Am* 2007; 40: 161-76.
- Yıldırım M, Oktay MF, Topçu İ, Meriç F. Boyun Kitleleri: 420 Olgunun Retrospektif Analizi. *Dicle Tıp Dergisi* 2006; 33: 210-214.
- Uysal IO, Altuntaş EE, Güler C, Tuncer E. Kliniğimizde 19 yıllık period da takipleri yapılan boyun kiteli olguların epidemiyolojik verilerinin retrospektif analizi. *KBB-Forum* 2010; 9: 30-34.
- Papadogeorgakis N, Petsinis V, Parara E, et al. Branchial cleft cysts in adults. Diagnostic procedures and treatment in a series of 18 cases. *Oral Maxillofac Surg* 2009; 13: 79-85.
- Valentino M, Quiligotti C, Carone L. Branchial cleft cyst. *J Ultrasound* 2013; 16: 17-20.
- Ibrahim M, Hammoud K, Maheshwari M, Pandya A. Congenital cystic lesions of the head and neck. *Neuroimaging Clin N Am* 2011; 21: 621-39.
- Whetstone J, Branstetter BFT, Hirsch BE. Fluoroscopic and CT fistulography of the first branchial cleft. *AJNR Am J Neuroradiol* 2006; 27: 1817-9.
- Golledge J, Ellis H. The aetiology of lateral cervical (branchial) cysts: past and present theories. *J Laryngol Otol* 1994; 108: 653-9.
- Zadvinskis DP, Benson MT, Som PM, et al. Embryology and congenital cystic lesions. in: Som PM, Curtin HD. (eds), *Head and neck imaging*. 2nd edition. St. Louis: Mosby, 1996: 754.
- Neel H, Pemberton J. Lateral cervical (branchial) cysts and fistulas. *Surgery* 1945; 18: 267-86.
- Ford GR, Balakrishnan A, Evans JN, et al. Branchial cleft and pouch anomalies. *J Laryngol Otol* 1992; 106: 137-43.
- Bailey H. Branchial cysts and other essays on surgical subjects in the facio-cervical region. London: Lewis, 1929.
- Maran AG, and Buchanan DR. Branchial cysts, sinuses and fistulae. *Clin Otolaryngol Allied Sci* 1978; 3: 77-92.
- Acierno SP1, Waldhausen JH. Congenital cervical cysts, sinuses, and fistulae. *Otolaryngol Clin North Am* 2007; 40: 161-176.
- Simpson RA. Lateral cervical cysts and fistulas. *Laryngoscope* 1969; 79: 30-59.
- Proctor B, Proctor C. Congenital lesions of the head and neck. *Otolaryngol Clin North Am* 1970; 3: 221-48.
- Ahuja AT, King AD, Metreweli C. Second branchial cleft cysts: variability of sonographic appearances in adult cases. *AJNR Am J Neuroradiol* 2000; 21: 315-9.
- Mitroi M, Dumitrescu D, Simionescu C, et al. Management of second branchial cleft anomalies. *Rom J Morphol Embryol* 2008; 49: 69-74.
- Daoud FS. Branchial cyst: an often forgotten diagnosis. *Asian J Surg* 2005; 28: 174-8.