

*Prikaz slučaja /
Case report*

STRIDOR I ASPIRACIONA PNEUMONIJA
ODOJČETA UZROKOVANI
KONGENITALNOM CISTOM BAZE JEZIKA
STRIDOR AND ASPIRATION PNEUMONIA
IN INFANT CAUSED BY CONGENITAL
TONGUE BASE CYST

Correspondence to:

Dr Dejana Bajić

Institut za zdravstvenu zaštitu dece i
omladine Vojvodine,
Klinika za pedijatriju
Hajduk Veljkova 10
21 000 Novi Sad, Srbija
Email : dejnadeki@gmail.com
Telefon: +381606231290

Dejana Bajić¹, Dragica Bulajić², Ljiljana Ristovski¹,
Nikola Eić¹, Nataša Kovač¹

¹ Institut za zdravstvenu zaštitu dece i omladine Vojvodine, Novi Sad,
Srbija

² Univerzitet u Novom Sadu, Medicinski fakultet

Ključne reči

inspiratorni stridor, nenapredovanje u
telesnoj masi, aspiraciona pneumonija,
kongenitalna cista baze jezika, odojče

Key words

inspiratory stridor, failure to thrive, aspi-
ration pneumonia, congenital tongue base
cyst, infant

Sažetak

Uvod: Stridor u novorođenačkom i odojačkom uzrastu je indikator opstrukcije na nivou gornjih disajnih puteva. Kongenitalne ciste baze jezika su retke, a zbog kompresivnog efekta na epiglotis mogu izazvati asfiksiju. Prikazaćemo slučaj odojčeta koje je imalo rekurentne aspiracione pneumonije i inspiratorni stridor prozrokovan cistom baze jezika udružen sa gastroezofagealnim refluksom. **Prikaz slučaja:** Žensko odojče uzrasta dva i po meseca primljeno je u Institut zbog povraćanja, nenapredovanja, hroničnog kašlja, ataka cijanoze i inspiratornog stridora. U kliničkom nalazu prisutni uvlačenje juguluma, stridor, ranoinspiratorni pukoti i nenapredovanje u telesnoj masi (<3. percentila). Na RTG snimku verifikovana aspiraciona pneumonija i bronhitis, na UZ abdomena gastroezofagealni refluks. U okviru šire dijagnostike načinjen CT vrata i grudnog koša, uočena cista na bazi jezika, neposredno iznad epiglotisa. Urađena laringoskopija i bronhoskopija, verifikovana cista ispred ulaza u larinks. Konsultovan maksilofacijalni hirurg, te je cista operativnim putem otklonjena. **Zaključak:** Ciste baze jezika zbog svoje specifične pozicije na raskršću disajnih i digestivnih puteva daju kompleksnu kliničku sliku. Vizuelizacione metode potvrđuju njihovo prisustvo, a najbolji ishod nastaje otklanjanjem istih operativnim putem.

UVOD

Inspiratorni stridor u novorođenačkom i odojačkom uzrastu indikator je opstrukcije na nivou gornjih disajnih puteva. Rani početak u prvim danima i nedeljama života može da ukaže na kongenitalni poremećaj, među kojima je najčešći uzrok stridora laringomalacija⁽¹⁾. Kongenitalne ciste baze jezika nisu česte u kliničkoj praksi, a u zavisnosti od njihove veličine i pozicije mogu biti asptomatske ili u najtežim slučajevima zbog kompresivnog efekta i pomeranja epiglotisa mogu prouzrokovati asfiksiju⁽²⁾. Rekurentne respiratorne infekcije i nenapredovanje u telesnoj masi mogu biti rane manifestacije izraženog gastroezofagealnog refluksa i aspiracije hrane⁽³⁾. Gastroezofagealni refluks (GER) je fiziološka pojava koju ima više od 50% beba u prva dva meseca života, a najčešće je prisutna zbog nezrelosti funkcije mišića (donji ezofagealni sfinkter) koji zatvara spoj jednjaka i želuca⁽⁴⁾. U ovom prikazu slučaja prezentova-

ćemo odojče koje je imalo rekurentne aspiracione pneumonije, gastroezofagealni refluks i inspiratorni stridor prouzrokovan kongenitalnom cistom baze jezika.

PRIKAZ SLUČAJA

Žensko odojče uzrasta dva i po meseca primljeno je u Institut zbog tegoba u vidu povraćanja, slabijeg uzimanja hrane, kašlja i epizoda prestanka disanju u trajanju do 10 sekundi i inspiratornog stridora koji je prisutan od osmog dana života. Tegobe u vidu kašlja prisutne posle svakog obroka, a u kliničkom nalazu uočljivo uvlačenje juguluma, položajno nezavisno, koje je vremenom postalo sve izraženije. Ovo je treća hospitalizacija od rođenja.

U pitanju je prvo dete iz prve trudnoće urednog toka, završene u 38 5/7 GN vaginalnim porođajem sa telesnom masom na rođenju 3120g (25. percentil) i Apgar Skorom 10/10. Rani adaptacioni period je protekao uredno, imalo je novorođenačku žuticu koja je tretirana fototerapijom i prim-

ilo BCG i Euvax B vakcinu. Prvi put je lečeno zbog gastroezofagealnog refluksa, prolomirane neonatalne žutice i hiponutricije. Drugi put je hospitalizovano u uzrastu novorođenčeta zbog aspiracione pneumonije (mleka), stridora i GER-a. Tokom hospitalizacije načinjena dijagnostika akta gutanja sa dijaskopijom ezofagogastrodudenuma gde je verifikovan izražen gastroezofagealni refluks do gornje trećine jednjaka. Pregeđano od strane otorinolaringologa te je urađena videoasistirana laringoskopija tri sata nakon obroka. Uočeno je zaostajanje mlečnog sadržaja i nemogućnost vizuelizacije struktura larinksa zbog prisustva hrane. Pored stridora koji je bio čujan u naporu i plaču, u fizikalnom nalazu uočeno diskretno uvlačenje juguluma, bez angažovanja pomoćne disajne musculature. Pratilo se od strane gastroenterologa zbog GER-a, uvedena antirefluksna (AR) mlečna formula i gastroprotektiv pantoprazol.

Na prijemu žensko odojče uzrasta dva i po meseca urednih vitalnih parametara, afebrilno, bledoružičaste boje kože očuvanog turgora i elasticiteta, sa telesnom masom 3970 g (ispod 3. percentila za uzrast). Čujan inspiratorni stridor, a auskultacijom na plućima prisutni ranoinspirirajmski pukoti obostrano difuzno. Ostali klinički nalaz po sistemima neupadljiv. U inicijalnim laboratorijskim nalazima krvna slika i biohemijske analize su bile u referentnom opsegu, izuzev CRP 8,5mg/l koji je bio diskretno iznad gornje granične vrednosti. Načinjen UZ abdomena koji je opisan kao uredan (osim prisutnog gastroezofagealnog refluksa). Na RTG pluća i srca verifikovana aspiraciona pneumonija i bronhitis.

Po prijemu u terapiju uveden antibiotk ceftazidim parenteralno uz probiotski preparat i nastavljena terapija gastroprotektivom pantoprazolom. Prva tri dana primenjivana infuzija glukosalina, uz postepenu dohranu adaptiranom mlečnom formulom (AR formula). Peroralni unos dobro tolerisalo. Uključene inhalacije krakodelujućim bronhodilatatorim fenoterol-ipratropijum bromidom i kortikosteroidom budesonidom uz čiju primenu i dalje prisutan inspiratorni stridor. Obzirom na održavanje inspiratornog stridora konsultovani otorinolaringolog i pulmolog te je u okviru šire dijagnostike načinjen CT vrata i grudnog koša i laringoskopija sa bronhoskopijom. Urađen je nativni CT vrata i grudnog koša na kojem je opisana suprahoidno u posteriornom aspektu baze jezika, u srednjoj liniji, neposredno iznad epiglotisa, jasno ograničena, cistična promena, aproksimativnih dimenzija 13x13x9mm (APxCCxLL), denziteta tečnosti, dok su centralno prisutne zone denziteta masti (slika br. 1). Formacija komprimuje obe vaskule, izraženije desnu i potiskuje epiglotis blago put naniže. Traheja i principalni bronhi slobodni. U apikalnim delovima plućnog parenhima sa desne strane vide se manja područja kondenzacije. Načinjena direktna laringoskopija te uočena okrugla tvorevina na bazi jezika, ispred ulaza u larinks. Pokušana intubacija rigidnim bronhoskopom, nije vizualizovan glotis zbog prisustva tumora, kako ne bi došlo do povrede, plasirana laringealna maska i neonatalnim fiberbronhoskopom vizualizovane glasnice koje su sedefaste, simetrično postavljene, traheja prstenaste gradje, membranoznog zida, očuvanog lumena, dalja eksploracija donjih disajnih puteva otežana.

Na osnovu kliničke slike i dijagnostikom potvrđene cistične formacije na bazi jezika (slika br.2) u konsultaciji sa maksilofacijalnim hirurinom indikovano je operativno lečenje. U toku intervencije uz pomoć kautera je cista perforirana i aspirirana veća koliničina gustog sadržaja. Uz pomoć mikroinstrumentarijuma se cista ekscidirala, a dobijeni je materijal poslat na patohistološku analizu. Nakon intervencije odojče je kratkotrajno bilo na mehaničkoj ventilaciji po tipu SIMV. Narednog dana je ekstubirano i prevedeno na spontano disanje, hemodinamski stabilno, uredne gasne razmene. premešteno na Odeljenje za patologiju malog deteta gde je inicijalno hospitalizovano. U kontrolnim laboratorijskim analizama sve vrednosti su bile u referentnom opsegu, a klinički nalaz po sistemima nakon intervencije uredan. Tokom hospitalizacije nisu opservirane apnee, a kontinuirani monitoring saturacije krvi kiseonikom prikazivao je vrednosti od 95-100% na sobnom vazduhu. U patohistološkom nalazu viđen fragment sluznice sa pravilnim pločasto-slojevitim epitelom na površini, a u lamini propriji se nalazi cista sa pločasto-slojevitim i delom cilindričnim epitelom. U okolnom vezivnom tkivu su prisutne seromukozne žlezde. Nalaz govori u prilog retencione ciste. Nakon operativnog lečenja i otpusta odojče se redovno prati od strane maksilofacijalnog hirurga, gastroenterologa i pulmologa. U kliničkom nalazu više nije prisutan stridor i dete napreduje u telesnoj masi.

DISKUSIJA

Uzroci stridora i otežanog disanja u odojačkom uzrastu su brojni a mogu se javiti u sklopu kliničke slike određenih urođenih anomalija, naslednih oboljenja, anatomskih varijacija struktura respiratornog sistema ili akutno nastale opstrukcije disajnih puteva. Manifestacija otežanog disanja zavisi od nivoa opstrukcije (npr hoanala atrezija, subglotična stenoza, traheozofagealna fistula) ili veličine tvorevine koja komprimuje disajni put (npr. cista, aspirirano strano telo). Nenapredovanje u telesnoj masi odojčeta diferencijalno dijagnostički je složen problem jer može biti posledica čitavog niza endogenih faktora (kongenitalnih anomalija i sindroma, urođenih metaboličkih poremećaja, malapsorpcionih sindroma, srčane slabosti, cistične fibroze, hipertireoidizma, celijačne bolesti, alergije na proteine kravljeg mleka, intolerancija laktoze...) (5). Gastroezofagealni refluks samostalno ili udruženo sa drugim poremećajima često je prisutan u odojačkom uzrastu, i ne izaziva simptome isključivo gastrointestinalne prirode već može da ima atipičnu prezentaciju u vidu hroničnog kašlja, stridora, rekurentnih pneumonija i pneumonitisa, neuobičajenog plača, lošijeg spavanja i epizoda apnee i bradikardije. U našem prikazu slučaja odojče je imalo dijagnostikovani gastroezofagealni refluks i kongenitalnu cistu baze jezika a oba stanja su doprinosila razvoju stridora, aspiracionim pneumonijama i nenapredovanju u telesnoj masi.

Prema istraživanju koje se bavilo incidencom kongenitalne ciste baze jezika u orijentalnoj populaciji, njihova prosečna godišnja zastupljenost je 1.82 slučaja na 100 000 živorođenih (6). S druge strane incidenca retencionih cista u usnoj duplji je mnogo veća i prosečno iznosi 2.4 slučaja na 1 000 stanovnika, a najviše je zastupljena u drugoj dekadi

života (7). U medicinskoj literaturi kongenitalne ciste baze jezika su relativno retki entiteti i za njihov opis u zavisnosti od lokalizacije koriste se različiti termini poput epiglotisna, lingualna, laringealna ili valekularna cista (6). Postoje dve hipoteze o nastanku ovih cista; jedna po kojoj one nastaju kao posledica opstrukcije mukusnih žlezda i druga po kojoj su posledica embrionalnih malformacija (8). U kliničkoj slici najčešće prisutan stridor, a pored njega tegobe mogu biti u vidu otežanog disanja, hroničnog kašlja, ataka cijanoze, izmenjenog plača, otežanog hranjenja, čestih respiratornih infekcija usled zagrcavanja i aspiracije mleka (9). Nenapredovanje u telesnoj masi nije uobičajen simptom odojčeta sa kongenitalnom cistom bazom jezika (10).

Evaluacija anatomije gornjih disajnih puteva pri inspekciji i kliničkom pregledu je prvi korak u diferencijalnoj dijagnozi uzroka stridora. Poznavanje etiologije i dijagnostičkog algoritma je od ključne važnosti pri pravovremenom postavljanju dijagnoze. Savremene radiološke metode iako sa sobom nose određeni rizik po zdravlje deteta zbog jonizujućeg zračenja ipak su neophodne u nejasnim slučajevima. CT vrata i grudnog koša omogućava vizuelizaciju struktura koje su nedostupne pri kliničkom pregledu i bolje uočavanje detalja nego što daje rendgenski snimak. Laringoskopija i bronhoskopija kao visokosofisticirane endoskopske metode pružaju mogućnost dijagnostikovanja patoloških stanja, precizne lokalizacije promena i uzi-

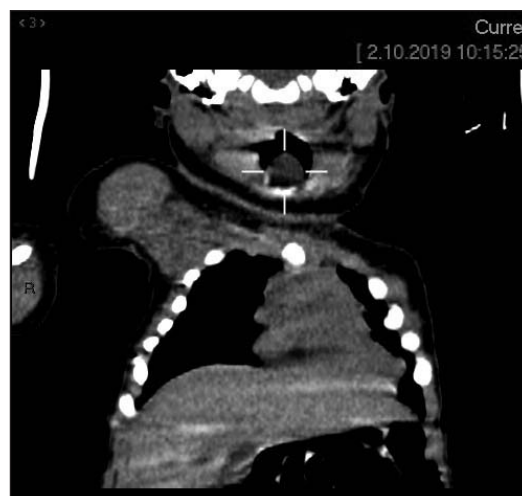
manje uzorka za patohistološku analizu ako je to izvodljivo i indikovano. Obzirom da ciste baze jezike zbog svoje pozicije i veličine mogu da prouzrokuju fatalan ishod, kao metoda izbora izdvaja se hiruško lečenje istih (11). To donosi otklanjanje simptoma i poboljšanje opšteg stanja. Prema protokolima u okviru diferencijalne dijagnoze važno je razmotriti i isključiti promene poput benignih tumora, hamartoma, dermoidnih cisti, vaskularnih malformacija i hemangioma. Preporuka je da se pre planiranja masupijalizacije ili ekcizije načini aspiracija promene tankom iglom i citološka analiza (FNAC- Fine Needle Aspiration Cytology).

ZAKLJUČAK

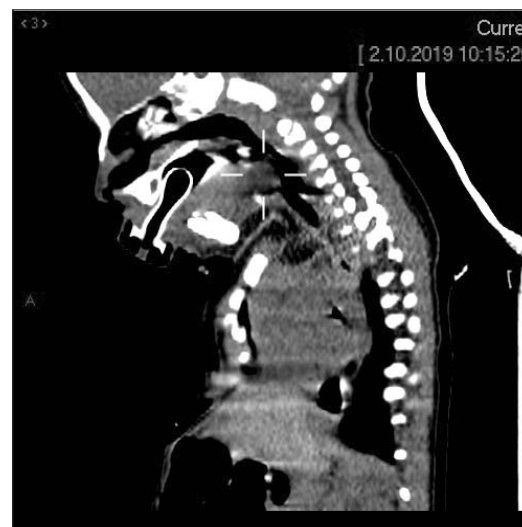
Kongenitalne ciste baze jezika su relativno retke u novorođenačkom i odojačkom uzrastu, ali potencijalno fatalne ako se na vreme ne dijagnostikuju i tretiraju. Pored kliničkog pregleda, izuzetno je važno proceniti potrebu za CT dijagnostikom i endoskopskim metodama poput laringoskopije i bronhoskopije. Simptomi poput stridora i nenapredovanja u telesnoj masi, kao i aspiraciona pneumonija moraju biti pažljivo razmatrani i diferencijalno dijagnostički analizirani u sklopu šire slike i traganja za njihovim uzrokom. U relevantnoj medicinskoj literaturi koja se bavi ovom problematikom metoda izbora je hiruški tretman ciste.



Slika br. 1 cista baze jezika u transverzalnoj ravni



Slika br. 2 Prikaz ciste u koronalnoj ravni



Slika br. 3 Prikaz ciste iz profila

Abstract

Introduction: Stridor in neonates and infants is the indicator of upper airway obstruction. Congenital base cysts are uncommon and due to their compressive effect could cause asphyxia. We are presenting a case of an infant with recurrent aspiration pneumonia and stridor caused by a cyst in conjunction with gastroesophageal reflux. **Case report:** A two and a half month old female infant was admitted to the Institute due to vomiting, stridor, chronic cough, failure to thrive and cyanotic attacks. Clinical findings showed the retraction of jugulum, early inspiratory crackles and failure to thrive (< 3 percentiles). Chest X ray confirmed aspiration pneumonia and bronchitis. Ultrasound of abdomen showed gastroesophageal reflux. CT neck images showed a cystic formation at the base of the tongue. Laryngoscopy and bronchoscopy confirmed the presence of the cyst. With the consent of the maxillofacial surgeon the cyst was removed surgically. **Discussion:** The potential causes of stridor, aspiration pneumonia and failure to thrive are numerous. The thorough differential analysis of all the relevant factors is crucial. In this case the most important techniques in recognizing and solving the problem were laryngoscopy and the CT scans of the neck. Gastroesophageal reflux itself can sometimes cause symptoms similar to stridor, pneumonia and failure to thrive. In the infant it was present along with the congenital base cyst. **Conclusion:** Tongue base cysts show a complex clinical status because of their specific position at the crossroads of airways and digestive system. Visual methods confirm their presence, while the best method is their surgical removal.

REFERENCES

- Holinger LD. Etiology of stridor in the neonate, infant and child. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1980;89:397-400.
- Eom M, Kim YS. Asphyxiating death due to basal lingual cyst (thyroglossal duct cyst) in two-month-old infant is potentially aggravated after central catheterization with forced positional changes. *Am J Forensic Med Pathol* 2008;29:251-4.
- Manaligod JM. Does Reflux Have a Causative Role in Laryngomalacia? *Otolaryngology: Open Access* 2013;3(3):1-4
- Czinn SJ, Blanchard S. Gastroesophageal reflux disease in neonates and infants: when and how to treat. *Paediatr Drugs* 2013;15(1):19-27
- Scholler I, Nittur S. Understanding failure to thrive. *Paediatrics and Child Health* 2012;22(10):438-42.
- Ahrens B, Lammert I, Schmitt M, Wahn U, Paul K, Niggemann B. Life-threatening vallecular cyst in a 3 month-old infant: case report and literature review. *Clinical Pediatrics* 2004;43(3): 287-90.
- Joshi SR, Pendyala GS, Choudhari S, Kalburge J. Mucocele of the glands of blandinnuhn in children: a clinical, histopathologic, and retrospective study. *N Am J Med Sci* 2012;4: 379-83.
- Yang MA, Kang MJ, Hong JN. A case of congenital vallecular cyst associated with GER presenting with stridor, feeding cyanosis and failure to thrive. *Korean Journal of Pediatrics* 2008;51(7):775-9.
- Yao TC, Chiu CY, Wu KC, Wu LJ, Huang JL. Failure to thrive caused by the coexistence of vallecular cyst, laryngomalacia and gastroesophageal reflux in an infant. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2004;68(11):1459-64.
- Sands NB, Anand SM, Manoukian JJ. Series of congenital vallecular cysts: a rare yet potentially fatal cause of upper airway obstruction and failure to thrive in the newborn. *J Otolaryngol Head Neck Surg* 2009;38:6-10
- Zamfir CA, Gheorghe DC. Vallecular cyst in clinical practice: report of two cases. *Journal of Medicine and Life* 2016;9(3):288-90.