

Smíšený stridor jako příčina cystické duplikatury jícnu

prof. MUDr. Vladimír Mihál, CSc.¹, MUDr. Martin Zápalka, Ph.D.¹, MUDr. Kamila Michálková²,
Barbora Remeníková², MUDr. Jiří Tůma, CSc.³

¹Dětská klinika LF UP a FN v Olomouci

²Radiologická klinika LF UP a FN v Olomouci

³Klinika dětské chirurgie, ortopedie a traumatologie FN Brno

Cystické jícnové duplikatury jsou vrozené cystické anomálie, které mohou zapříčinit různé klinické příznaky. U sedmiletého chlapce prezentujeme případ duplikatury jícnu, která byla lokalizována v dolní třetině jícnu a klinicky se prezentovala jako trvalý jemný smíšený stridor a dušnost po námaze. Definitivní léčbou byla chirurgická resekce s kompletní úpravou klinických příznaků.

Klíčová slova: cystické jícnové duplikatury, smíšený stridor, dušnost po námaze, dítě.

Biphasic stridor as a cause of esophageal duplication cyst

Esophageal duplication cysts are congenital rare cystic anomalies that may induce various symptoms. In a 7-year-old boy we present a case of a esophageal duplication located at the lower third esophagus that was clinically presented as permanent soft biphasic stridor and dyspnea after physical exertion. Definitive treatment was surgical removal followed with complete resolution of clinical symptoms.

Key words: esophageal duplication cysts, biphasic stridor, dyspnea, child.

Úvod

První popis cystické duplikatury jícnu publikoval Blasius již v roce 1711 (1). Duplikatury jícnu jsou vzácné vrozené anomálie, které se zakládají již v průběhu třetího až šestého týdne embryonálního vývoje střeva a plic. incidence je 1/8000 (2, 3). Jsou benigní a často asymptomatické. Duplikatury mohou být dlouho němé a bývají často náhodným nálezem při rentgenovém vyšetření hrudníku z jiné indikace. Nejčastějšími klinickými projevy jsou poruchy polykání nebo respirační poruchy při lokalizaci v horním mediastinu.

V diferenciální diagnostice připadají v úvahu tumory a pseudotumory mediastina (leiomyomy, lipomy, hamartomy, neurofibromy, bronchogenní cysty, abscesy).

Duplikace jícnu probíhají paralelně s jícnem a chovají se jako cysty. Jde v podstatě o intramurální jícnové cysty vystlané dlaždicovým nebo cylindrickým epitelem a jsou považovány za aberaci ve vakuolizaci primitivního jícnu. Vyskytují se ve formě **intramurálních cyst** nebo duplikatur, které mají společnou stěnu a mohou, nebo nemusí komunikovat s lumen vlastního jícnu nebo **neurenterických cyst**, duplikatur ve vlastním slova smyslu, které jsou lokalizovány v zadním mediastinu, naléhají k jícnu nebo páteřním obratlům (4). Často jsou lokalizovány na pravé straně v dolní třetině jícnu. Při uložení v horní třetině mediastina (krční duplikatury jícnu) jsou doprovázející klinické příznaky časté,

někdy i život ohrožující, a děti bývají obvykle v péči otorinolaryngologů.

Klinický případ

Permanentní mírný smíšený stridor a dušnost po námaze se u 7letého pacienta postupně prohlubovaly, byl vyšetřen u alergologa. Protože poslední 3 roky se respirační potíže (opakované laryngitidy, dušnost po námaze) ani po antialergické léčbě (inhalační kortikoidy, Alerius, inhační léčba, Bronchovaxom) a provedené adenotomii neupravily, dítě bylo objednáno k vyšetření do naší alergologicko-pneumologické ordinace.

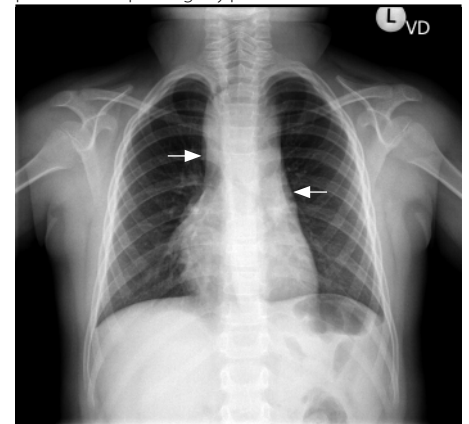
Matka a dvě sestry jsou v místě bydliště v péči alergologů. Chlapec je ze IV. těhotenství (1x UPT), PH 4450 g/PD 53 cm, očkovan dle kalendáře + pneumokok. Operace: adenotomie (8/2013), dispenzarizace v endokrinologii pro struma diffusa (subklinická hypotyreóza – Euthyrox: 25 µg denně), neurologie: dětská emoční porucha.

Objektivní vyšetření v odborné ordinaci: hmotnost 35 kg, lehká faciální stigmatizace – širší kořen nosu, po stránce respirační klinický v klidu. Stridor – distančně expirační – poslechově je smíšený, kašel suchý, dušný t.č. není. Nosohltan klidný, AS pravidelná, ozvy ohraničené, na plicích smíšený stridor, břicho volně prohmatné bez organomegalie.

Rtg vyšetření plic (obrázek 1): vpravo perihilózní a bazální parakardiálně je nehomogenně hrubší kresba. Jinak je patrná **atypická kontura mediastina**, která je oboustranně symetricky **rozšířena se zdvojenou konturou** v oblasti ascendentní

Pediatr. praxi 2014; 15(4): 233–234

Obrázek 1. AP prostý snímek hrudníku: horní mediastinum je mírně rozšířené oběma směry, jeho kontura je na obou stranách zdvojená (šipky), bylo vysloveno podezření na patologický proces v horním mediastinu



aorty i horní duté žíly – není typický obraz pro zvětšený thymus. Plicní parenchym je bez ložiskových změn. Bránice hladká, kostofrenické úhly jsou volné. Srdeční stín je normálního tvaru a velikosti. Dítě bylo objednáno k provedení CT vyšetření plic v celkové narkóze (obrázky 2, 3). V oblasti zadního mediastina je oválný ohraničený útvar dosahující velikosti 84×39×53 mm, denzity 15 HU, který komprimuje proximální polovinu trachey a dosahuje k hlavním bronchům. Trachea je mírně dekována doprava. Zdá se, že útvar nekomunikuje s páteřním kanálem ani nedosahuje ke štítné žláze. Skelet Th páteře je bez strukturálních změn. V mediastinu nejsou zvětšené lymfatické uzliny. Plicní parenchym má přiměřenou denzitu. Nejsou patrné žádné

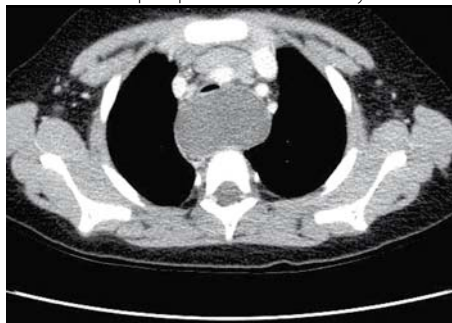
Obrázek 2. Nativní CT vyšetření hrudníku, axiální sken v úrovni horního mediastina. V horním zadním mediastinu se zobrazuje hypotenzní útvar, který dislokuje jícen doprava a tracheu ventrálně



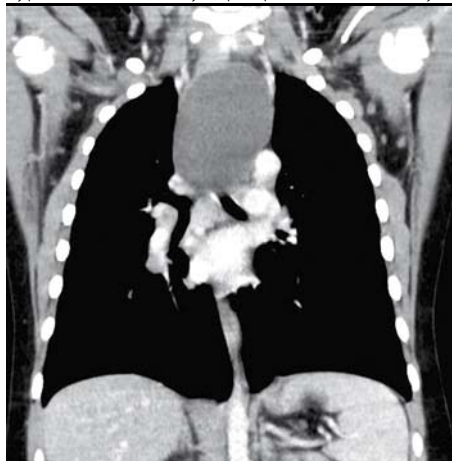
Obrázek 3. Nativní CT vyšetření hrudníku, koronární rekonstrukce. V horním mediastinu je patrný hypotenzní útvar oválného tvaru, jícen je patrný jako výraznější hypotenzní proužek při jeho horní kontuře vpravo



Obrázek 4. CT hrudníku s kontrastní látkou i. v., axiální sken. Hypodenzní cystoidní útvar v zadním mediastinu se po aplikaci k. l. i. v. nenasytil



Obrázek 5. CT hrudníku s k. l. i. v., koronární rekonstrukce. V horním mediastinu je patrný oválný velký hypotenzní útvar, který se po aplikaci k. l. i. v. nenasytil



ložiskové změny ani infiltrace. Bronchovaskulární struktury jsou přiměřené šíře, pravidelně se větví. Pleurální změny nejsou patrné.

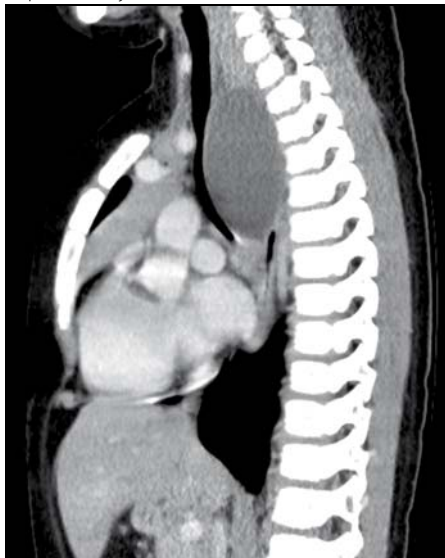
Závěr

cystický tumor zadního mediastina. K dalšímu dořešení bylo dítě přeloženo na dětskou onkologickou kliniku FN Brno. Zde bylo provedeno opakované CT vyšetření s kontrastní látkou, kde byl potvrzen hypodenzní cystoidní útvar v zadním mediastinu, který se po aplikaci kontrastní látky i. v. nenasytil. Útvar dislokoval tracheu ventrálně a komprimoval její lumen. Při dolním okraji útvaru byl dorzálně patrný krátký úsek plynem naplněného jícnu (obrázky 4, 5, 6). Bylo vysloveno podezření na vrozenou cystickou duplikaturu jícnu, která byla potvrzena při torakoskopické exstirpaci. Histologie: nález odpovídá kongenitální cystě duplikačního typu, v souladu s klinickým předpokladem. Duplikatura je bez známek dysplazie nebo malignity. Průběh hospitalizace byl bez komplikací, po výkonu přechodně nedostatečné rozvinutí pravé plic. Chlapec byl 10 dnů od operace propuštěn do domácí péče v dobrém klinickém stavu s doporučením postupného vysazení antialergické léčby pod dohledem lékaře.

Diskuze

Je více zobrazovacích technik, které můžeme použít při diagnóze ezofageálních cyst. Endoskopický ultrazvuk je jedinečnou metodou a někteří radiologové ji upřednostňují i před CT vyšetřením, jelikož dovede velmi přesně rozlišit cystické léze od solidních a intraluminálních od ex-

Obrázek 6. CT hrudníku s k. l. i. v., sagitální rekonstrukce. V zadním mediastinu před páteří je patrný cystoidní hypodenzní útvar, který dislokuje tracheu ventrálně a komprimuje její lumen. Při dolním okraji útvaru je dorzálně patrný krátký úsek plynem naplněného jícnu



traluminálních a dobře umožňuje zhodnotit i vztah cyst k dalším strukturám (2). CT vyšetření je optimální nejen pro přesné určení velikosti, ale i anatomickou lokalizaci cysty k přilehlým strukturám, a nejpřesněji informuje chirurga před samotným výkonem. Pro diagnostiku se dnes využívá nejčastěji. Definitivní potvrzení diagnózy se provádí histologickým vyšetřením podle klasifikace Arbona nebo Palmera (1). V našem případě ke správným diagnostickým postupům hodně napomohl již samotný popis rentgenového snímku hrudníku, na němž byla nalezena **atypická kontura** horního mediastina, které bylo oboustranně symetricky rozšířeno se **zdvojenou konturou** v oblasti ascendentní aorty i horní duté žíly.

Klinická diagnóza ezofageálních duplikačních cyst se podaří diagnostikovat obvykle do 2 let věku pouze u 22 % pacientů. Cystické duplikatury jícnu, které jsou lokalizovány ve střední a dolní třetině jícnu, jsou obvykle asymptomatické. Klinické příznaky, pokud jsou přítomny, závisejí na lokalizaci jícnových duplikačních cyst a obvykle vznikají v důsledku útlaku přilehlých struktur. V 70 % je přítomna dysfagie, ve 20 % diskomfort v epigastriu a v 10 % bolest za hrudní kostí (5). Pokud cystická jícnová duplikatura (tak jako u našeho pacienta) způsobuje odtlačení stěny trachey, může být příčinou smíšeného stridoru i zvýšeného dechového úsilí a při endoskopickém vyšetření může napodobovat tra-cheomalacii (2). Definitivním řešením je obvykle chirurgické odstranění cystické duplikatury jícnu, které vede k úpravě klinických příznaků (3, 6).

Literatura

1. Arbona JL, Fazzi JG, Mayoral J. Congenital esophageal cysts: case report and review of literature. *Am J Gastroenterol* 1984; 79(3): 177–182.
2. Moulton MSJ, Moir C, Matsumoto J, Thompson DM. Esophageal duplication cyst: a rare cause of biphasic stridor and feeding difficulty. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2005; 69: 1129–1133.
3. Nobuhara KK, Gorski YC, La Quaglia MP, et al. Bronchogenic cysts and esophageal duplications: common origins and treatment. *J Pediatr Surg* 1997; 32(10): 1408–1413.
4. Šnajdauf J, Škába R. Dětská chirurgie. Praha: Galén, 2005: 150–151.
5. Nyan S, Nguyen LHP, Nguyen VH, et al. Cervical esophageal duplication cyst: case report and review of the literature. *J Pediatr Surg* 2010; 45: E1–E5.
6. Lee SY, Kim HY, Kim SH, et al. Thoracoscopic resection of a cervical esophageal duplication cyst in a 3-month-old infant: a case report. *J Pediatr Surg* 2013; 48: 873–875.

prof. MUDr. Vladimír Mihál, CSc.

Dětská klinika LF UP a FN
Puškinova 5, 775 20 Olomouc
vladimir.mihal@fnol.cz

