

Prenatal Sakrokoksigeal Teratom Tanısı Almış Bir Mekonyum İleus-Peritonit Olgusu

Başak Baksu¹, İnci Davas¹, Jale Özgül¹, Figen Ezen¹, Alper Özel², Gülden Yenice², Mehmet Yalçın³

¹Şişli Etfal Hastanesi, Kadın Hastalıkları ve Doğum Kliniği, ²Radyoloji Kliniği, ³Çocuk Cerrahisi Kliniği, İstanbul

Özet

Amaç: Mekonyum ileus tanısındaki zorluklar ve tanıda fetal manyetik rezonans görüntülemenin yerini tartışmak.

Olgu: Yirmidört yaşında, 33 hafta 3 günlük tekil gebeliği mevcut hastada, obstetrik ultrasonografi, manyetik rezonans ve fetal Doppler incelemelerinde, fetal pelvis yerleşimli, 66x56 mm boyutlarında, semisolid, yer yer kalsifikasyonlar içeren, vaskülarite göstermeyen kitle ve polihidramnios saptanması üzerine hospitalize edilmiştir. Bu antenatal incelemeler sonucu tip 4 sakrokoksigeal teratom öntanısı alan fetus, doğumu takiben yapılan laparotomi sırasında mekonyum ileus-peritonit olarak değerlendirilmiş ve ileri tetkiklerde kistik fibrozis saptanmıştır.

Sonuç: Ultrasonografi ve manyetik rezonans görüntüleme fetusta batında kitle izlenmesi halinde, özellikle de asit, intraabdominal kalsifikasyon, barsak dilatasyonu gibi bulgular eşlik ediyorsa mekonyum ileusu ve peritoniti ayırıcı tanıda düşünülmelidir.

Anahtar Sözcükler: Mekonyum peritoniti, sakrokoksigeal teratoma, manyetik rezonans.

A case report of meconium ileus-peritonitis with a prenatal diagnosis of sacro-coccygeal teratoma

Background: To discuss the difficulties in the diagnosis of meconium peritonitis and to determine the role of magnetic resonance in differential diagnosis.

Case: Twentyfour-year-old woman with a 33-gestational-weeks pregnancy was hospitalized due to polyhydramnios and a fetal pelvic semi-solid mass with areas of calcifications, measuring 66x55 mm in diameter, showing no vascularization that was diagnosed by obstetric ultrasonography, magnetic resonance and fetal Doppler imaging. Antenatal diagnosis of a type 4 sacrococcygeal teratoma turned out to be meconium ileus-peritonitis during postpartum laparotomy and cystic fibrosis was final diagnosis.

Conclusion: When an intraabdominal mass is seen in a fetus with ultrasonography and magnetic resonance, especially accompanied by ascites, intraabdominal calcifications and bowel dilatations, meconium peritonitis and ileus should be considered in the differential diagnosis.

Keywords: Meconium peritonitis, sacrococcygeal teratoma, magnetic resonance.

Giriş

Doğum Hekimliği'nde son 20 yılda, kongenital anomeliler konusunda pek çok gelişme kaydedilmiştir. Bu gelişmenin asıl nedeni obstetrik ultraso-

nografinin yaygın bir şekilde kullanılmasıdır. Yapısal anomalilerin tanınma oranları ultrasonografi ile %70'lere ulaşmıştır. Bu yüzden antenatal yönetim klinik önemi de giderek artmaktadır.¹ Yapısal anomalilerde olduğu gibi gastrointestinal sistem ano-

malilerinin doğru prenatal tanı alması, doğumun daha iyi planlanması, erken cerrahi müdahale, daha az komplikasyon gibi nedenlerden dolayı, postnatal sonuç ile yakından ilgilidir.

Gastrointestinal sistem anomalilerinin tanısında ultrasonografi esastır. Bu anomalilere dair en sık bulgular; barsak dilatasyonu, polihidroamnios, hiperkojenik barsak ve asittir. Ancak, bu bulguların çoğu spesifik olmamakla beraber gebeliğin geç dönemlerinde oluşabilir veya geçici normal varyasyonlara bağlı olabilir.² Obstetrik ultrasonografinin bu tip anomalileri yakalama duyarlılığı, anomalinin kendine has özelliklerine bağlıdır.³ Son yıllarda bazı gruplar gastrointestinal anomalilerinin tanımlanmasında, ağır malformasyonların saptanmasında veya intraabdominal kiste komşu normal barsağın gösterilmesinde obstetrik manyetik rezonans (MR) kullanımını önermişlerdir.⁴

Yazımızda prenatal ultrasonografi ve obstetrik MR ile tip 4 sakrokoksigeal teratom tanısı alan, ancak doğumu takiben peroperatif mekonyum ileus-peritonit olarak değerlendirilen bir olgu sunulmuştur. Mekonyum ileus tanısındaki zorluklar ve fetal MR görüntülemenin yeri tartışılmıştır.

Olgu

Yirmidört yaşında, iki vajinal doğumu ve geçirilmiş bir ektopik gebelik operasyonu bulunan, son adet tarihine göre 33 hafta 3 günlük tekil gebeliği mevcut hasta, ikinci düzey ultrasonografi ve fetal Doppler incelemesi sonucunda, fetal pelvise yakın yerleşimli, 66x56 mm boyutlarında, semisolid, yer yer kalsifikasyonlar içeren, vaskülarizasyon göstermeyen kitle ve polihidramnios saptanması üzerine sakrokoksigeal teratom ön tanısı ile kliniğimize refere edilmişti. Hastanın konjenital anomalili doğum öyküsü yoktu. Ancak birinci derece akraba evliliği (amca çocukları) mevcuttu. Obstetrik muayenede kollum 2 cm dilate, efasman yok, baş gelişi, baş mobil ve poş intakt idi. Yapılan obstetrik ultrasonografide intrauterin, canlı, tekil gebelik mevcuttu. Biparietal çap 82 mm, baş çevresi 301 mm, karın çevresi 330 mm, femur uzunluğu 65 mm idi. Amniyotik sıvı indeksi 40 cm, plasenta ön duvar yerleşimliydi. Fetusun pelvisinde, mesane ile kolumna vertebralis arasında yerleşen, 55x70 mm boyutlarında, heterojen ekolu, septasyon ve kalsifikasyon gösteren kitle ve batında asit izlendi (Resim 1).

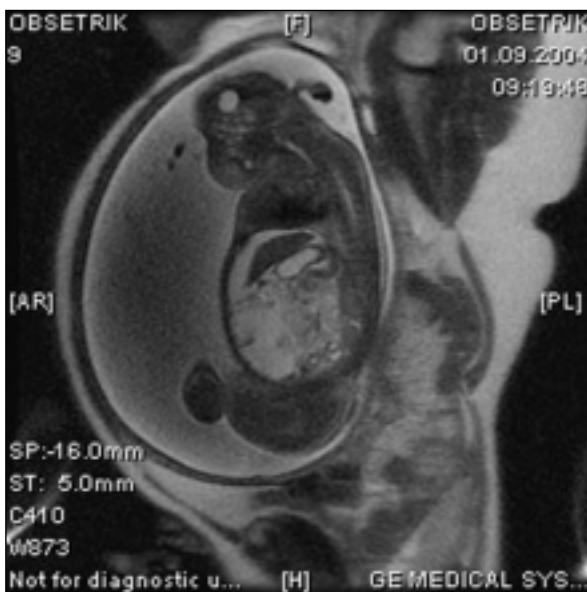


Resim 1. Fetusun pelvisinde, 55x70 mm boyutlarında, heterojen ekolu, septasyon ve kalsifikasyon gösteren kitle ve batında asit izlendi.

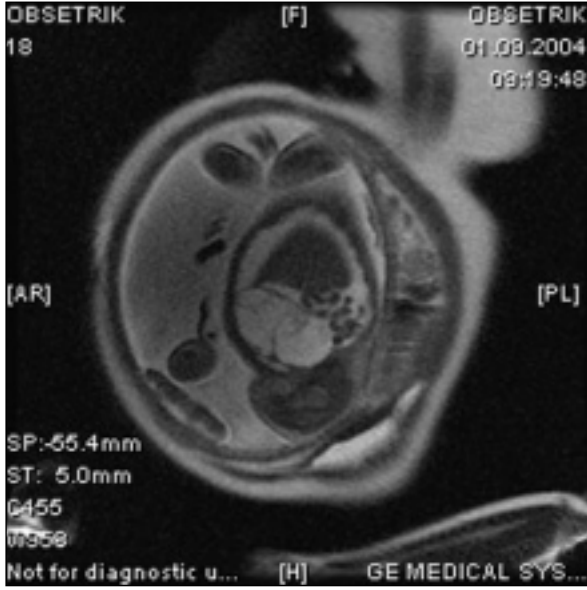
Bu bulgular ile obstetrik MR inceleme için Radyoloji kliniğine refere edildi. Obstetrik MR inceleme 1.5 Tesla (Signa; GE Medical Systems, Milwaukee, Winconsin) MR cihazı ile 'body-coil' kullanılarak gerçekleştirildi. Fetal pozisyon sonografi ile belirlendi. Fetal sedasyon amacı ile maternal premedikasyon ya da kontrast madde kullanılmadı. Aksiyel, koronal ve sagittal planlarda Half-Fourier Single Shot Turbo Fast Spin Echo ile T1 ve T2 ağırlıklı sekanslar ile görüntüler elde edildi. Fetal pelvisi ve abdomeni dolduran, solid komponentler içerikli kistik predominant yer kaplayan lezyon boyutları yaklaşık 60x70 mm ölçüldü. Lezyon presakral mesafeye de uzanım göstermekteydi. Elde edilen T2 ağırlıklı sekanslarda kist içerik alanları hiperintens görünümdeyken T1 ağırlıklı sekanslarda hipointens-intermediate intensitede izlendi. Her iki sekansta hipointens fokuslar kalsifikasyon ile uyumlu olarak değerlendirildi. Fetal batında asit ve amniyos sıvı miktarında artış eşlik etmekteydi (Resim 2 ve 3). Fetal mide, duodenum ve proksimal jejunal anslar normal genişlikteydi (Resim 4). Rektum lümeni patent izlenirken kolon segmentleri nonvizualizeydi. Lezyon basısına sekonder olabileceği yönünde değerlendirildi. Fetal böbreklerde toplayıcı sistemde hafif genişleme distalde bası etkisine sekonder olarak izlendi (Resim 5). MR bul-

guları ile fetal pelvis-presakral mesafe ve abdomeni dolduran, solid komponentler içerikli kistik predominant yer kaplayan lezyonun intraabdominal yerleşimli sakrokoksigeal teratom (Amerikan Pediatri Akademisi sınıflamasına göre tip IV) ile uyumlu olabileceği düşünüldü.⁵ Takip incelemeler önerildi.

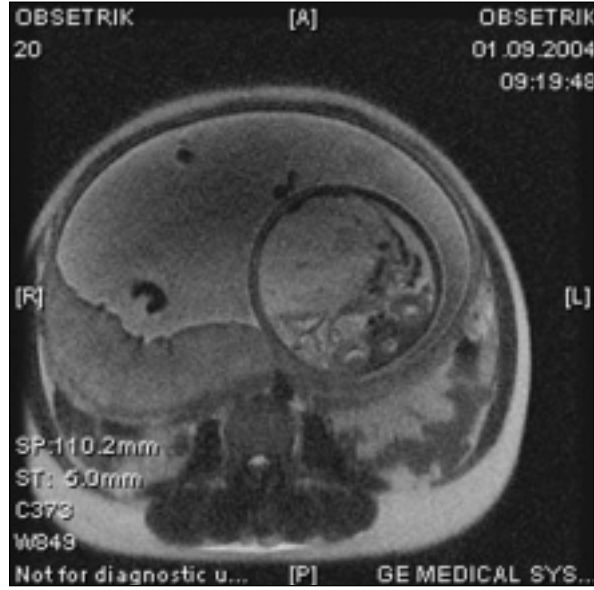
Hastanın takibi boyunca fetal asit miktarı arttı. Yatışının 20. gününde, kontraksiyonlarının başlaması üzerine ve doğum şeklinin belirlenmesinde güncel yaklaşımın tümör boyutuna bağlı olduğu göz önüne alınarak (kitle >5 cm) sezaryana alındı.¹ Kırkdokuz santim, 3400 gr, birinci dakika APGAR skoru 8 olan bir kız bebek doğurtuldu. Yenidoğan ve çocuk cerrahisi ekibi tarafından yapılan ilk muayenesinde kalp tepe atımı 140/dk, kardiyovasküler ve solunum sistem muayeneleri doğaldı. Batın distandü idi ve venöz belirginleşme mevcuttu. Dinlemekle barsak sesleri alınamadı, anüs açıktı ve rektal tuşede mekonyum izlenmedi. Direk batın grafisinde batının yarısını dolduran seviye veren gaz görüntüsü saptandı. Bebekte ilk planda mekonyum ileusu ve peritoniti, poş kolon, kolonik atrezi ve aganglionik megakolon düşünüldü. Doğumu takiben 36 saat sonra bebek operasyona alındı. Laparotomide tüm barsak duvarlarının üzeri ve omentumun kistleşmiş mekonyum ile örtülü olduğu,



Resim 2 ve 3. Sagittal ve koronal imajlarda, septal yapılar ve solid komponentler içerikli kistik predominant yer kaplayan lezyon, septa üzerinde hipointens kalsifikasyon, fetal asit, polihidroamniyos.



Resim 4. Koronal imajda, yer kaplayan lezyon komşuluğunda, normal kalibrede ince barsak ansları görülmüştür.



Resim 5. Aksiyel kesitte, yer kaplayan lezyon ve bilateral renal toplayıcı sistemde dilatasyon izlenmektedir.

omentumun nekroze olduğu ve batin duvarına yapışık olduğu, bridlerin oluştuğu gözlemlendi. Nekrotik omentum yapıları ve bridler eksize edildi. Birçok odakta loküle kistik yapılar (mekonyum kistleri) eksize edilip aspire edildi. Çıkan kolonun ve ileumun volvulus şeklinde kitle oluşturduğu, ileumun ileoçekal valvin 40-50 cm proksimalinde perforasyon olduğu ve buranın distalinin sigmoid bölgeye kadar mekonyum tıkaçı ile dolu olduğu izlendi. Manuel olarak mekonyum proksimale doğru dekompresyon edilerek temizlendi. Bu bölgede hazırlanan ileum uçları sağ alt kadranda loop-ostomi şeklinde cilde ağızlaştırıldı. Böylece mekonyum ileusu ön tanısı doğrulanmış oldu. Uç kısımdan alınan biyopside ganglion hücrelerinin görülmesi ile aganglionik megakolon tanısından uzaklaştırıldı. İki ay sonra ileostomi kapatıldı. Postoperatif ileri tetkiklerden sonra mekonyum ileusunun sıklıkla eşlik ettiği kistik fibroz tanısı konulan bebek şu anda dokuz aylık, 5600 gr ve tedavisine halen devam edilmektedir.

Tartışma

Mekonyum peritoniti nadir görülen fetal ve neonatal bir durumdur. Özellikle ince barsakları ilgilendiren antenatal barsak perforasyonu sonucu gelişir.² Olgumuzda ileum, ileoçekal valvin 40-50 cm proksimalinden perforasyon olmuştu. Altta yatan ne-

denler ince barsak atrezisi, mekonyum ileus, volvulus ve intususepsiyon olmasına rağmen çoğu zaman idiopatikdir.⁶ Vakamızda, çıkan kolonun ve ileumun volvulus şeklinde kitle oluşturduğu gözlemlendi. Mekonyum peritoniti, masif generalize peritonit (tip I), mekonyum psödokisti (tip II) ve rezidüel intra-abdominal kalsifikasyonla sonuçlanan prenatal tam restorasyon (tip III) olarak sınıflandırılmıştır. Prognoz değişken olmakla birlikte büyük oranda altta yatan patolojiye ve eşlik eden anomalilere bağlıdır.⁷ Gastrointestinal malformasyonun eşlik etmediği mekonyum peritoniti olgularında prognoz daha iyidir.⁸ Bizim olgumuzda mekonyum peritonitine, çıkan kolon ve ileumda volvulus eşlik etmekteydi.

Mekonyum ileus ve peritoniti, prenatal ultrasonografi ile tanınabilse de bulgular değişkendir. Prenatal sonografik görüntü barsak obstrüksiyonu, mekonyum psödokisti, intraperitoneal kalsifikasyonlar, fetal barsak dilatasyonu, bazen polihidramniyos ya da fetal hidrops gibi bulgularla desteklenebilir. Bununla beraber sadece fetal asit görüntüsü de olabilir.⁷ En tipik antenatal ultrason bulgusu, intraperitoneal kalsifikasyonlardır. Bu kalsifikasyonlar, intraperitoneal mekonyum uyarısı ile başlayan enflamatuvar reaksiyon sonucu gelişen fibrotik dokunun kalsifiye olmasına bağlıdır.⁶ Intra-abdo-

minal ekojen bir kist görüldüğünde mutlaka mekonyum psödokisti ayırıcı tanıda düşünülmalıdır. Perforasyon sonuca batına yayılan barsak içeriği barsak ansları tarafından çevrenir ve etrafında fibröz bir doku oluşur. Düzensiz ve kalın cidarlı olan bu psödokist, debris, septasyon, kalsifikasyon veya hepsini içerebilir.⁷ Olgumuzda ultrasonografik olarak heterojen ekolu, septasyon ve kalsifikasyon gösteren kitle ve batında asit izlendi.

Kırkbin doğumda bir görülen ve fetal neoplaziler içerisinde en sık saptanan sakrokoksigeal teratom da benzer görüntü özelliklerinde izlenebilmektedir. Presakral mesafeden kaynaklanır; pelvis ve abdomene yayılımına göre 4 tip olarak sınıflandırılmaktadır. Tip IV, eksternal komponenti olmayan internal kitle şeklindedir. Tüm teratomlar içerisinde %10 oranında görülüp %85'i solid-kistik mikst formdadır. Kalın cidarlı, solid komponentler içerikli kistik lezyonda 2/3 oranında kalsifikasyon görülebilir. Polihidramniyos genellikle eşlik eder. Plasentomegali ve fetal hidrops birlikte görülebilir. Tanıda MR, lezyon boyutunu ve abdominal, özellikle de intrapelvik yayılımı göstermek için yararlıdır.^{9,10}

Mekonyum pseudokisti ve sakrokoksigeal teratom benzer görüntü özelliklerinde izlenebilmektedir. Kistik-solid komponentler içerikli lezyon, kalsifikasyon içeriği, polihidramniyos ve hidrops her iki durumda da görülebilmektedir. Dilate barsak ansları da benzer şekilde hem mekonyum ileus-peritonitinde hem de kitlenin bası etkisine sekonder izlenebilir. Yanısıra, her iki durumda da proksimal barsak ansları normal genişlik ve normal görüntü özellikleri de sergileyebilir. MR incelemede kistik içerik T2 ağırlıklı sekanslarda hiperintens, T1 ağırlıklı sekanslarda mekonyum pseudokistinde intermediate intensitede, sakrokoksigeal teratomda ise kist içerikteki materyale göre hipointens ya da intermediate sinyal intensitesinde görülebilir.¹¹

Otuzüç gebelik haftasındaki olgumuzda mikst yapıdaki lezyon solid-kistik komponentler içerikli olup kistik alanları ultrasonografide hipoekoik görünümdeydi. MR incelemede proksimal jejunal anslar normal kalibrede izlenmiş olup dilate barsak ansı ya da sonografide ekojenik barsak görünümü izlenmedi. Fetal abdomende serbest peritoneal sıvı ve bilateral renal toplayıcı sistemde basıya sekonder dilatasyon eşlik etmekteydi. Bu bulgularla ol-

gumuzda prenatal tanı, ikinci düzey ultrasonografi, fetal Doppler ve MR incelemeleri sonucu tip 4 sakrokoksigeal teratom olarak konmuştur. Ancak gebelik ultrasonografi takibi düzenli yapılırsa idi daha erken dönemde dilate-ekojenik barsak ansları saptanabilir, MR incelemede obstruksiyon yeri ve anormal sinyal özelliği gösteren barsak yapıları mekonyum ileusu tanısına götürebilirdi. Ortalama 27. haftada mekonyum ile dilate barsak ansları saptanabilmektedir, mekonyum pseudokisti yaklaşık 32. haftada gelişmektedir.⁹

Veyrac ve arkadaşlarının fetal gastrointestinal sistem anomalilerini MR ile inceledikleri çalışmalarında mekonyum psödokistin T2 ağırlıklı sekanslarda sıvı benzeri sinyal, T1 sekansında ise intermediate sinyal verdiğini, böylece gastrointestinal duplikasyon kisti gibi diğer bazı kistlerden ayırt edilebileceğini bildirmişlerdir.² Ayırıcı tanıda, tüm intraabdominal kistik kitleler düşünülmalıdır. Bunlar arasında en sık fetal neoplazi olan sakrokoksigeal teratomlar ön plandadır.¹² Komplike kistik kitleye eşlik eden intraperitoneal kalsifikasyonlar varlığında tanı biraz daha kolay konmaktadır.⁶

Clatworthy mekonyum ileusunu ayrı bir durum olarak tanımlasa da kendisi ve diğer araştırmacılar bu durumun sıklıkla aganglionik megakolon ya da kistik fibrozun ilk bulgusu olabileceğini bildirmişlerdir.² Olgumuzda peroperatif alınan biyopside aganglionik megakolon tanısından uzaklaşıldı. Postoperatif ileri tetkiklerde kistik fibrozis tanısı konuldu.

Mekonyum ileus ve peritonitinin prenatal bulguları ile yenidoğan sonuçları arasında korelasyon kurmayı hedefleyen birçok çalışma yapılmıştır.^{7,13,14} Eckoldt ve arkadaşları, retrospektif inceledikleri 21616 hastanın 96'sında olası gastrointestinal sistem anomalisi, bunların da 11'inde prenatal barsak perforasyonu ve/veya mekonyum peritoniti saptamışlardır. Postnatal mekonyum peritoniti veya psödokisti tanısı konan hastaların prenatal bulguları intraabdominal kistik ekojenik yapılara eşlik eden dilate barsak ansları (5 olgu), dilate barsak ansları (3 olgu), serbest intraabdominal sıvı (2 olgu) ve dilatasyon olmadan ekojenik barsak (1 olgu) olarak bildirmişlerdir.⁷

Fetal gastrointestinal sistem anomalilerinin MR ile tanısına, anormal barsak boyutu, anormal bar-

sak sinyali ve anormal intraabdominal yapılara eşlik eden normal barsak görüntüleriyle gidilmektedir. Manyetik rezonans ile mekonyum ileus ve peritonitin tanınmasında barsağın normal görüntüsü, intestinal dilatasyon varlığı ve yeri ve postatrezik barsağı görüntüleme konusunda güvenilir görünmektedir.² Ancak bizim olgumuzda olduğu gibi prenatal obstetrik ultrasonografi ve MR görüntüleme ile tanısı konulamayabilir.

Manyetik rezonans, megasistis-mikrokolon-intestinal hipoperistaltizm sendromu, multipl atrezi, konjenital kısa barsak gibi ağır malformasyonların tanısında daha çok bilgi verici gibi durmaktadır.² Ultrasonografi ve MR görüntüleme fetusta batında kitle izlenmesi halinde, özellikle de asit, intraabdominal kalsifikasyon, barsak dilatasyonu gibi bulgular eşlik ediyorsa mekonyum ileusu ve peritoniti ayırıcı tanıda düşünülmelidir. Bu konuda daha çok deneyim kazanılmalı ve MR inceleme endikasyonları belirlenmelidir.

Kaynaklar

1. Anteby EY, Yagel S. Route of delivery of fetuses with structural anomalies. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2003; 106:5-9.
2. Veyrac C, Couture A, Saguintaah M, Baud C. MRI of fetal GI tract abnormalities. *Abdom Imaging* 2004; 29: 411-20.
3. Courteville JE, Gray DL, Langer JC. Bowel abnormalities in the fetus-correlation of prenatal ultrasonographic findings with outcome. *Am J Obstet Gynecol* 1996; 175: 724-9.
4. Saguintaah M, Couture A, Veyrac C, Baud C. MRI of the fetal gastrointestinal tract. *Pediatr Radiol* 2002; 32: 395-404.
5. Elchalal U, Ben-Shachar I, Nadjari M, Gross E, Appleman Z, Caspi B. Prenatal diagnosis of acute bladder distention associated with sacrococcygeal teratoma-a case report. *Prenatal Diagnosis* 1995; 15: 1160-4.
6. Hertzberg BS, Kliewer MA, Bowie JD. Sonography of the fetal gastrointestinal system. In: *Sonography in Obstetrics and Gynecology: Principles and Practice*. Fleischer AC, Manning FA, Jeanty P, Romero R (Eds). Fifth Edition, Prentice-Hall International Inc, Appleton and Lange, Connecticut, 1996. 411-431.
7. Eckoldt F, Heling KS, Woderich R, Kraft S, Bollmann R, Mau H: Meconium peritonitis and pseudo-cyst formation: prenatal diagnosis and post-natal course. *Prenat Diagn* 2003; 23: 904-8.
8. Shyu MK, Shih JC, Lee CN, et al. Correlation of prenatal ultrasound and postnatal outcome in meconium peritonitis. *Fetal Diagn Ther* 2003; 18: 255-61.
9. Budorick NE. The fetal musculoskeletal system. In: *Ultrasonography in Obstetrics and Gynecology*. Callen PW (Ed). Forth edition. WB Saunders Company, Philadelphia, Pennsylvania, 2000. 366-369.
10. Neural tube defects. In: *Diagnostic Imaging of Fetal Anomalies*. Nyberg DA, McGahan JP, Pretorius PH, Pulu G (Eds). Lippincott Williams&Wilkins, Philadelphia, Pennsylvania, 2003. 324-329.
11. Siegel MJ, Pediatric and adolescent pelvis. In: *Computed Tomography and Magnetic Resonance imaging of the whole body*. Haaga JR, Lanzieri CF, Gilkeson RC (Eds). Forth edition. Mosby, St Louis, Missouri, 2003. 2090-2091.
12. Chisholm CA, Heider AL, Kuller JA, Von Allmen D, McMahon MJ, Chesneir NC. Prenatal diagnosis and perinatal management of fetal sacrococcygeal teratoma. *Am J Perinatol* 1999; 16: 47-50.
13. Kamata S, Nose K, Ishikawa S, et al. Meconium peritonitis in utero. *Pediatr Surg Int* 2000; 16: 377-9.
14. Chalibinski K, Deutinger J, Bemaschek G. Meconium peritonitis: extrusion of meconium and different zoographical appearances in relation to the stage of disease. *Prenat Diagn* 1992; 12: 631-6.