



# Fetal aksiller kistik higromanın prenatal tanısı ve bleomisin ile postnatal tedavisi

Aslıhan Yazıcıoğlu, Mert Turğal, Özge Senem Yücel, Özgür Özyüncü

Hacettepe Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kadın Hastalıkları ve Doğum Anabilim Dalı, Ankara

## Özet

**Amaç:** Fetal kistik higroma, lenfatik sistemin nadir bir konjenital malformasyonu olup fetal vücudun değişik kısımlarında multiloküle kistik kitle oluşumu ile karakterizedir. Beklegör yönetimi, aspirasyon, cerrahi ve sklerozan ajan kullanımı günümüzde mevcut tedavi seçenekleri arasında yer almaktadır. Burada, bir fetal aksiller kistik higroma olgusunun antenatal takibi ve postnatal dönemde skleroterapi ile başarılı tedavisi tartışılması amaçlanmıştır.

**Olgu:** Otuz yaşındaki gebenin, gebeliğinin 32. haftasında tanı alan bir fetal aksiller kistik higroma olgusu saptandı. Postnatal izlemde bleomisin ile skleroterapi uygulandı. Sonuç, iyi kozmetik sonuç ile birlikte mükemmeldi.

**Sonuç:** Doğum zamanlamasını etkilemesi ve tersiyer postnatal bakım gerektirmesi nedeniyle, fetal kistik higromanın prenatal tanısı önem taşımaktadır.

**Anahtar sözcükler:** Fetal kistik higroma, prenatal tanı, bleomisin skleroterapi.

## Prenatal diagnosis and postnatal treatment with bleomycin of fetal axillary cystic hygroma

**Objective:** Fetal cystic hygroma is a rare congenital malformation of the lymphatic system, characterized by the formation of a multilocular cystic mass in different parts of the fetal body. Expectant management, aspiration, surgery and the use of sclerosing agents are the current treatment options available today. Herein, we discussed a case of fetal axillary cystic hygroma with its antenatal follow-up and successful postnatal treatment with sclerotherapy.

**Case:** In this report, we present a case of fetal axillary cystic hygroma diagnosed antenatally at 32nd weeks of gestation followed by full-term delivery in a 30-year-old woman. During postnatal follow up, bleomycin sclerotherapy was performed. The result was excellent with good cosmetic result.

**Conclusion:** Since it affects the timing of birth and requires tertiary postnatal care, prenatal diagnosis of fetal cystic hygroma is very important.

**Key words:** Fetal cystic hygroma, prenatal diagnosis, bleomycin sclerotherapy.

## Giriş

Kistik higroma lenfatik sistemin konjenital bir malformasyonu olup, sıklıkla boyun bölgesi yerleşimli büyük, multiloküle sıvı dolu boşluklar olarak belirmektedir.<sup>[1,2]</sup> Hidrops fetalis, yapısal malformasyonlar ve başta Turner sendromu olmak üzere fetal kromozom bozuklukları ile ilişkilidir.<sup>[3]</sup>

Tedavi yaklaşımı klinik tabloya, lezyonun büyüklüğüne, anatomik yerleşimine ve ilişkili komplikasyonlara göre değişmektedir. Cerrahi yaklaşım tercih edilen tedar

vi seçeneği olmakla birlikte, bazı olgularda lezyonun komşu hayati yapılara infiltrasyon göstermesi bu yaklaşımın uygulanmasını güçleştirmektedir. Tam eksizyon her zaman gerçekleştirilememektedir ve cerrahi sonrası sıklıkla nüks meydana gelmektedir.<sup>[4]</sup> Hasta sinir hasarı, uzamış lenfatik drenaj, nüks, yara enfeksiyonu, kabul edilemez skar oluşumu ve komşu hayati yapılara infiltrasyon nedeni ile kısmi rezeksiyon gibi pek çok morbid durumdan etkilenebilmektedir.<sup>[2]</sup> Son yıllarda, kistik higroma tedavisinde bazı cerrahlarca iki sklerozan ajan, bleomisin ve OK-432, tercih edilir hale gelmiştir.<sup>[4]</sup>

**Yazışma adresi:** Dr. Aslıhan Yazıcıoğlu, Hacettepe Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kadın Hastalıkları ve Doğum Anabilim Dalı, Ankara.  
e-posta: draslihanakar@hotmail.com

**Geliş tarihi:** Ocak 7, 2013; **Kabul tarihi:** Nisan 22, 2013

Bu yazının çevrimiçi İngilizce sürümü:  
www.perinataljournal.com/20130212010  
doi:10.2399/prn.13.0212010  
Karekod (Quick Response) Code:



Makalede, antenatal dönemde tanı alan bir fetal aksiller kistik higroma olgusu, olgunun bleomisin skleroterapi ile postnatal tedavisi ve mükemmel tedavi sonrası sonucu sunulmaktadır.

### Olgu Sunumu

Otuz yaşında, gravidası 3, paritesi 2 olan 32 haftalık gebe hasta, bir hastanede yapılan rutin ultrasonografide sol fetal aksilla yerleşimli kitle tespit edilmesi üzerine hastanemize sevk edildi. Hastanın aile hikayesi ve öz geçmişi herhangi bir özelliğe rastlanmadı ve eşi ile akrabalığı yoktu. Mevcut gebelikte, 1. trimester biyokimyasal tarama testi ve 16. gebelik haftasında bakılan maternal serum  $\alpha$ -fetoprotein düzeyi normaldi. Yirminci gebelik haftasında yapılan ikinci trimester fetal anomali tarama ultrasonu sonucu da normaldi.

Otuz ikinci gebelik haftasında hastanemizde yapılan ultrasonda, fetusun sol aksiller bölgesinden ön ve arka toraks duvarına uzanım gösteren, 5x6 cm büyüklüğünde, çok septumlu kistik kitle saptandı. Kitlenin intratorasik uzanımına dair bir kanıt yoktu. Diğer fetal sonografik biyometrik endeksler ve amniyotik sıvı miktarı normaldi. Fetusta başka bir yapısal anormallik izlenmezken, yapılan fetal ekokardiyografi de normal sınırlardaydı. Prenatal karyotipleme başvurusundaki ileri gebe-

lik haftası nedeniyle önerilmedi. Bu bulgularla kistik higroma ön tanısı konuldu.

Sonografi 36. gebelik haftasında tekrarlandı; normal fetal büyüme izlenirken kitle boyutunda değişiklik görülmedi. Otuz sekizinci gebelik haftasında makat prezentasyon ve hiperabdükte sol kola eşlik eden membran rüptürü nedeniyle sezaryen ile doğum gerçekleştirildi. 3210 gram ağırlığında 1. ve 5. dakika Apgar skorları sırasıyla 9 ve 10 olan kız bebek doğurtuldu. Doğumda, bebeğin sol aksiller bölgesine yerleşim gösteren 5x5 cm büyüklüğünde, yumuşak kistik kitle izlendi (**Şekil 1**). Bebeğe buna eşlik eden başka herhangi bir yapısal anomali yoktu. Periferik kandan bakılan karyotip analizi normal, 46,XX idi. Doğumdan bir ay sonra manyetik rezonans göğüs görüntülemesi yapıldı ve ön ve arka toraks duvarına uzanım gösteren kontrast tutan septumları bulunan, 8x3x5 cm büyüklüğünde makrokistik kitle izlendi (**Şekil 2**). Kitlenin intratorasik uzanımı olmamakla birlikte, brakial pleksus ile yakın komşulukta idi. Kitlenin kistik yapıda olması, tam olmayan rezeksiyon ihtimali, ilişkili nüks ve sinir hasarı nedeniyle pediatrik cerrahi uzmanları tarafından bleomisin ile skleroterapi uygulandı. Sonuç mükemmeldi; bleomisine bağlı komplikasyon olmadı ve hastada tedaviden 6 ay sonra rezidü hastalık yoktu.



**Şekil 1.** Fetüsün doğumdaki görüntüsü. Doğumda çekilen klinik fotoğrafta sol aksiller bölgede, kolun hiperabduksiyonuna neden olan, 5x5 cm büyüklüğünde yumuşak kistik kitle görülmektedir. [Bu şekil, derginin [www.perinataldergi.com](http://www.perinataldergi.com) adresindeki çevrimiçi sürümünde renkli görülebilir.]



**Şekil 2.** Fetal MRG'de aksiller kitle. Kontrastlı koronal MR görüntüleri 8x3x5 cm büyüklüğünde, ön ve arka toraks duvarına uzanım gösteren, kontrast tutan septumları olan makrokistik kitleyi göstermektedir.

## Tartışma

Fetal kistik higroma, lenfatik sistemin gelişimsel anomalisinden kaynaklanan, sıklıkla fetal boyun bölgesinde, sıvı dolu şişkin boşluklardan meydana gelen konjenital bir malformasyondur.<sup>[3]</sup> Kistik higroma insidansı 6000 doğumda 1 olmakla birlikte, aborte edilen fetüslerde 1:875 sıklıkla nispeten daha yaygın bir anomalidir.<sup>[5]</sup>

Kistik higroma postnatal anatomik değişkenlik göstermektedir. %75'i sol tarafta daha fazla olmak üzere boyunda, çoğunlukla da arka üçgende ve %20'si aksiller bölgede yer almaktadır.<sup>[2]</sup> Diğer nadir konumlar ise mediasten, kasık ve retroperitondur.

Kistik higroma ile ilişkili kromozom anormalliklerinin sıklığı yüksektir (%78), en yaygın görüleni Turner sendromudur.<sup>[5]</sup> Ayrıca trizomiler, kardiyak anomaliler, hidrops fetalis ve Noonan sendromu da bu konjenital malformasyon ile ilişkilidir.<sup>[6]</sup> Olgumuzun karyotip analizi sonucu normaldi. Antenatal dönemde kistik higroma tespit edildiğinde, seri ultrason ile değerlendirilmesi önerilmektedir.<sup>[5]</sup> Kardiyak, renal anomaliler ve

hidrops fetalis belirtilerinin araştırılması diğer öneriler arasındadır.

Prognoz; karyotip, kitlenin yeri, tanı anındaki gebelik haftası, invazyon derinliği, septasyon içermesi gibi pek çok değişkene bağlıdır.<sup>[3,5]</sup> Olgumuz geç üçüncü trimesterde, intratorasik uzanımı olmayan aksiller bölge yerleşimli yumruk büyüklüğünde septalı kistik kitle şeklinde tanı almıştır. Bu iyi huylu lezyonların büyüme kapasitesi olması nedeniyle, seri ultrasonografik ölçümler doğumun zamanlaması ve doğum şeklinin kararlaştırılmasında önemlidir. Küçük izole kistik higroma olgularında, standart obstetrik yönetimi modifiye etmeye gerek yoktur.<sup>[3]</sup> Büyük lezyonlar mevcutsa, sezaryen doğum önerilebilir.<sup>[3]</sup> Masood ve ark. fetal gövdenin doğumu sırasında meydana gelen distosi bildirmişlerdir.<sup>[6]</sup> Olgumuzda büyük kitleye eşlik eden kol abdüksiyonu olduğu için, hasta distosi hakkında bildirilmiş ve sezaryen ile doğum gerçekleştirilmiştir.

Tıp literatüründe çok sayıda tedavi seçeneği vardır, fakat bunların arasında cerrahinin ve sklerozan ajan kullanımının belirtilmesi gerekir. Bu lezyonlar genellikle sinir ve damar gibi komşu hayati yapıları infiltre ettikleri için, cerrahi eksizyon istenmeyen sinir ve damar hasarı ve rezidü hastalık ile sonuçlanabilir. Rezidü hastalık sonrasında; yara enfesiyonu, nüks ve kötü kozmetik sonuç neden olabilir. Kistik higroma tedavisinde başka bir tedavi seçeneği olan intralezyonel sklerozan ajan kullanımı ileri sürülmüştür. 1966 yılında, Umezawa, kemoterapi ajanı olan bleomisin keşfetmiştir.<sup>[4]</sup> 1977 yılında, Yura ve ark., intralezyonel bleomisin enjeksiyonunda ilk tatmin edici sonuçları bildirmiştir.<sup>[7]</sup> Ayrıca Niramis ve ark. bleomisinin kolay aspirasyona izin veren tek, yüzeysel ve büyük kistik lezyonlarda daha etkili olacağını ileri sürmüşlerdir.<sup>[4]</sup> Kitlede küçülme eksizyonel cerrahiyi kolaylaştıracağı için kısmi küçülme de değerlidir.<sup>[8]</sup> Niramis, enjeksiyondan sonraki 24-48 saat içinde, enjeksiyon bölgesinde geçici şişlik, ağrı, ateş, kızarıklık ve lökopeni bildirmişlerdir.<sup>[4]</sup> Geçici kemik iliği supresyonu nedeniyle, bebeklerde doz azaltımı önerilebilir.

## Sonuç

Fetal kistik higromanın prenatal tanısı bu hastaların yönetiminde büyük önem taşımaktadır. Zamanlanmış doğum ve postnatal takip prognozda kritik rol oynar. Cerrahlar seçilmiş olgularda alternatif tedavi yaklaşımı olan intralezyonel bleomisin enjeksiyonunun yanı sıra tedavi ile ilişkili yan etkileri de akılda bulundurulmalıdır.

**Çıkar Çakışması:** Çıkar çakışması bulunmadığı belirtilmiştir.

### Kaynaklar

1. Burezq H, Williams B, Chitte SA. Management of cystic hygromas: 30 year experience. *J Craniofac Surg* 2006;17:815-8.
2. Baskin D, Tander B, Bankaoğlu M. Local bleomycin injection in the treatment of lymphangioma. *Eur J Pediatr Surg* 2005;15:383-6.
3. Temizkan O, Abike F, Ayvaci H, Demirag E, Görücü Y, Isik E. Fetal axillary cystic hygroma: a case report and review. *Rare Tumors* 2011;3(4):e39.
4. Niramis R, Watanatittan S, Rattanasuwan T. Treatment of cystic hygroma by intralesional bleomycin injection: experience in 70 patients. *Eur J Pediatr Surg* 2010;20:178-82.
5. Song TB, Kim CH, Kim SM, Kim YH, Byun JS, Kim EK. Fetal axillary cystic hygroma detected by prenatal ultrasonography: a case report. *J Korean Med Sci* 2002;17:400-2.
6. Masood SN, Masood MF. Case report of fetal axillo-thoraco-abdominal cystic hygroma. *Arch Gynecol Obstet* 2010;281:111-5.
7. Yura J, Hashimoto T, Tsuruga N, Shibata K. Bleomycin treatment for cystic hygroma in children. *Nihon Geka Hokan* 1977;46:607-14.
8. Uslu T, Koç A, Ortaç F, Dündar İ. Fetal kistik higroma. *T Klin Jinekolo Obst* 1992;2:109-11.