

İNFAHTA BESLENME GÜÇLÜĞÜ VE GELİŞME GERİLİĞİNE NEDEN OLAN SUBLİNGUAL DERMOİD KİST

INFANTILE SUBLINGUAL DERMİD CYST RESULTING IN FEEDING DIFFICULTY AND FAILURE TO THRIVE
Baş Boyun Cerrahisi

Başvuru: 20.09.2016
Kabul: 09.10.2017
Yayın: 09.10.2017

Sinan Atmaca¹, Ayşe Çeçen²

¹ Ondokuz Mayıs Üniversitesi Tıp Fakültesi
² Samsun eğitim ve araştırma Hastanesi

Özet

Dermoid kistler nadir rastlanılan, iyi huylu, konjenital, ektodermal kökenli lezyonlar olup, vücutta herhangi bir lokalizasyonda yerleşebilirler. Dermoid kistler konjenital olmalarına rağmen; uzun yıllar asemptomatik kalırlar ve genellikle ikinci veya üçüncü dekatta semptom vermeye başlarlar. Literatürde 1 yaşın altında dermoid kist olgu sayısı sınırlıdır. Bu çalışma ile kliniğimizde tedavi edilen 2 aylık bebekte sublingual yerleşimli dermoid kist olgusu klinik özellikleri, ayırıcı tanıda dikkat edilmesi gereken diğer patolojiler ve tedavisi literatür eşliğinde değerlendirilerek sunulmuştur.

Anahtar kelimeler: Boyunda kitle, Dermoid kist Ağız tabanı

Abstract

Dermoid cysts are rare, benign, congenital lesions of ectodermal origin that can localize in any part of the body. Despite their congenital origin, they may be asymptomatic for a long time as symptoms usually arise in second to third decades. There are limited case reports of dermoid cysts younger than 1 year in the literature. Here we present a 2-month-old infant with sublingual dermoid cyst and discuss the clinical findings, differential diagnosis and treatment in light of the relevant literature.

Keywords: Neck masses, Dermoid cyst Floor of mouth

Giriş

Dermoid kistler keratinize çok katlı yassı epitel ile döşeli, çeperinde deri ekleri içeren iyi huylu konjenital lezyonlardır. Etyolojileri hakkında çeşitli teoriler mevcuttur ve en çok kabul gören teori; embriyojenik dönemin 3-4. haftalarında, 1. ve 2. Brankial arkların orta hatta kapanması sırasında embriyojenik hücrelerin mezenkim doku içinde kalmalarıdır. Travma ya da cerrahi girişim sırasında epidermal ve dermal elemanların implantasyonu ve tiroglossal kanal kistlerinin bir çeşidi olması diğer önemli teorilerdendir [1,2].

Dermoid kistler vücuttaki herhangi bir embriyolojik birleşme noktasından gelişebilmektedirler. Primer olarak testis ve overlerde görülmeyle birlikte; baş-boyun bölgesinde görülme oranı yaklaşık %7' dir ve tüm oral kavite kistlerinin % 0,01' inden daha azını oluşturmaktadır [3,4]. Dermoid kistlerde belirgin bir cinsiyet ayrımı yoktur. Konjenital olmalarına rağmen semptom vermeye ikinci veya üçüncü dekatta başlamakla beraber olgumuzda olduğu gibi pediatrik olgular nadiren rapor edilmiştir.

Ayırıcı tanıda; ranula, Wharton kanalının unilateral veya bilateral blokajı, lipom, tiroglossal duktus kisti, kistik higroma, lenfanjiom, vasküler malformasyon, brankial yarı kistleri, ağız tabanının selülit veya akut enfeksiyonu, tükürük bezi enfeksiyonları ve lenfoma akla gelebilir [5,6].

Tedavisi; kitlenin total eksizyonudur.

Olgu Sunumu

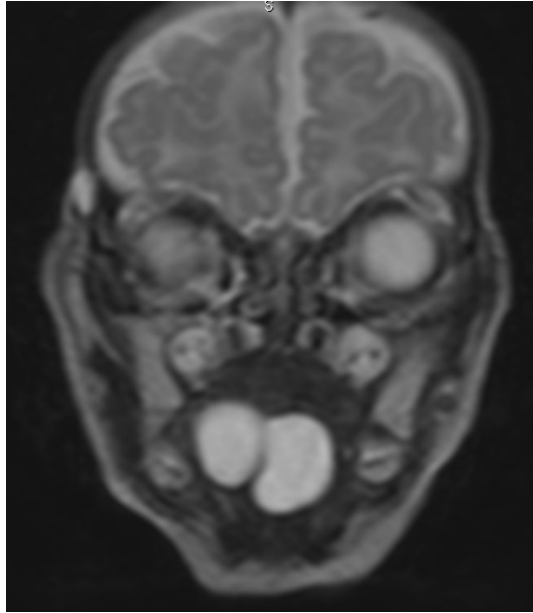
Doğuştan beri dil altında gittikçe büyüyen şişlik, emerken zorlanma, beslenme problemleri ve buna bağlı gelişim geriliği, özellikle sırt üstü yatış pozisyonunda olan ve emerken artan solunum zorluğu şikayeti ile dış merkeze başvuran hastanın dış merkezde yapılan ultrasonografisinde (USG) ranula düşünülüp iğne ile ponksiyon yapılmış. İşlem sonrası antibiyoterapi verilen hastanın sonrasında şikayetleri devam etmesi üzerine ailesi tarafından 2 aylıkken kliniğimize getirildi. Hastanın yapılan fizik muayenesinde (FM) sublingual yerleşimli, dili yukarı ve arkaya doğru iten, üzeri normal mukoza ile örtülü yaklaşık 3x3 cm boyutlarında yumuşak kıvamlı kitle ile karşılaşıldı (Şekil 1).



Şekil 1 :

Sublingual düzgün yüzeyli kitlenin görüntüsü

Hastanın yapılan diğer kulak burun boğaz muayeneleri doğaldı. Kliniğimizde çekilen manyetik rezonans (MR) görüntülemesinde; ağız tabanında düzgün sınırlı, birbirine komşu 2 adet, 16x20 mm çaplarında, T1' de hipo, T2' de belirgin hiperintens, hava sütununa en yakın mesafede 15 mm olan kistik lezyonlar izlendi olarak raporlandı (Şekil 2).



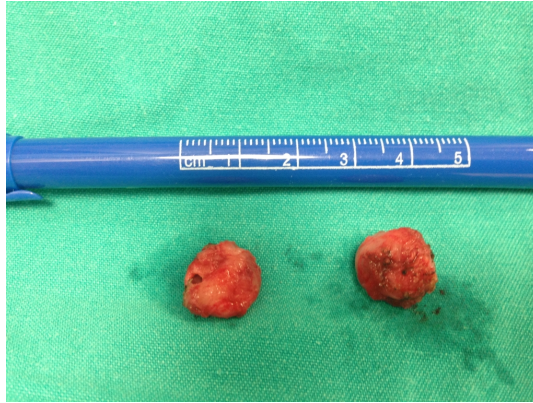
Şekil 2 :

T1 ağırlıklı MR kesitinde, ağız tabanında düzgün sınırlı, birbirine komşu 2 adet, 16x20 mm çaplarında kistik lezyonlar

Olgu, dermoid/ epidermoid kist ön tanısı ile genel anestezi altında intraoral yaklaşım ile opere edildi. Mylohyoid ve geniohyoid kas lifleri arasında yerleşik, birbiri ile temas halinde her biri yaklaşık 2x2 cm' lik, düzgün yüzeyle, çevre yumuşak dokulara invazyon göstermeyen, 2 adet kistik kitle etraf dokulardan diseke edilerek bütün olarak eksize edildi (Şekil 3- 4).



Şekil 3 : Kitlenin intraoperatif etraf dokulardan diseke edilmiş görüntüsü



Şekil 4 : Kitlenin makroskopik görüntüsü

Hasta postoperatif aynı gün oral beslenmeye başlatıldı ve postoperatif 4 günlük takibinde emmesinde ve oral alımında düzelme olduğu gözlemlendi. Postoperatif dönemde herhangi bir komplikasyon gelişmeyen hasta 4. gün önerilerle taburcu edildi.

Kitlenin histopatolojik incelemesinde çok katlı yassı epitel ile örtülü duvarında deri ekleri yanı sıra kanama alanları ve bir kısmı kıl kesitleri içeren yabancı cisim tipi dev hücreler, mikst tipte iltihabi hücre infiltrasyonu, vasküler proliferasyon, konjesyon ve fibröz doku artımı ile karakterize iltihabi granülasyon dokusu oluşumu izlendi ve tanı dermoid kist olarak raporlandı. Hastanın postoperatif 1,5 yıllık takiplerinde nüks izlenmedi (Şekil 5).



Şekil 5 :

Postoperatif 1 yıl sonraki, ağız tabanının normal olduğu görüntüsü

Tartışma ve Sonuç

Teratomlar çocuklarda sık rastlanılan germ hücreli gelişimsel patolojilerdir. Bunlar bir veya daha fazla embriyonik germ yaprağından köken alabilir ve dermoid, epidermoid ve teratoid kist olarak alt gruplara ayrılabilir [7,8]. Dermoid ve epidermoid kist ektoderm kaynaklı inklüzyon kistleri olup yalnızca epitel tabakası içerenlere epidermoid kist; cilt ve eklentilerini içerenlere dermoid kist; kıkırdak, kemik veya kas dokusu içerenlere ise teratoid kist denilir [9]. Dermoid kistler, kist ile ağız tabanındaki kas dokusunun komşuluğuna göre mediyan genioglossal, mediyan geniohyoid ve lateral kist olarak 3 gruba ayrılırlar. Sublingual dermoid kistler genellikle ağız tabanı ön bölümünde, yavaş büyüyen, ağrısız, yumuşak kıvamlı şişlik olarak ortaya çıkarlar. Semptomlar lokalizasyon yerlerine ve boyutlarına bağlı olarak solunum sıkıntısı, beslenme güçlüğü, intermitant öksürük,

siyanoz, disfajidir [10]. Bonet-Coloma ve arkadaşlarının yaptığı pediatrik grup çalışmasında; 3 olgu yenidoğan ve 5 olgu 1-14 yaş aralığında olmak üzere 3 sublingual, 1 lingual, 1 periorbital ve 3 tanesi nazal bölgede yerleşmiş 8 pediatrik dermoid kist olgusu bildirmişlerdir. Sublingual dermoid kistlerin hepsinin orta hatta yerleşimli olduğunu ve dermoid kistlerin dilde yerleşiminin ise çok nadir olduğunu bildirmişlerdir. Bu çalışmada dil ventral zemin orta hatta bir yenidoğan dermoid kist olgusu da sunulmuştur. Olguların tedavisinde ise kist kapsülü ile birlikte çıkarılmıştır [11].

Wagner ve arkadaşlarının yaptığı çalışmada; 2 aylık bir infantta ilerleyici solunum sıkıntısı, hipoksemi ve beslenme güçlüğü olan orofarengeal dermoid kist olgusu sunulmuştur [12].

Makos ve arkadaşlarının yaptığı çalışmada; 21 yaşındaki bayan hastada submental bölgede 5 yıldır olan, yavaş büyüyen, ağrısız kitle, son 6 ayda giderek artan disfaji ve dizartri şikayetlerine sebep olmuş ve 6,5 cm' lik kitle submental yöntemle genel anestezi altında eksize edilmiş, patoloji sonucu dermoid kist olarak raporlanmış. 17 yaşında bir başka hastada ise 2 yıldır olan, son zamanlarda ağrılı, enflame olan, ağız tabanında şişliğe sebep olan, yaklaşık 5,5 cm' lik kitle intraoral yolla eksize edilmiş, patoloji sonucu dermoid kist olarak raporlanmış. Her iki hasta 6 aylık aralıklarla 2 yıl takip edilmiş ve takiplerinde nükse rastlanmadığı bildirilmiştir[2].

Bizim olgumuzda ise dili yukarı ve arkaya ittiğinden beslenme problemleri ve buna bağlı gelişme geriliği, ara ara olan, sırt üstü yatmakla, beslenmekle ve eforla artan solunum sıkıntısına sebep olmuştu. Tanıda hikaye ve FM oldukça önemli yer tutar. Ayırıcı tanıda USG, BT ve MR görüntüleme yöntemleri kullanılır. USG güvenilir, ekonomik ve radyasyona maruz bırakmadığı için ilk görüntüleme yöntemi olarak kullanılabilir. BT ve MR daha kesin lokalizasyon verdiği, kaslarla ilişkiyi daha iyi ortaya koyduğu ve özellikle büyük lezyonlarda cerraha uygun cerrahi yaklaşım açısından fikir verdiği için kullanılmaktadır. Bu tür kitlelerin ince iğne aspirasyon biyopsisi (İİAB) ve histopatolojik olarak incelenmesiyle tanı kesinleştirilebilir. Ancak dermoid kistlerde, İİAB sıklıkla yetersiz, değişken ya da tanısal olmayan sonuçlar ile birlikte (13). Olgumuzda lezyonun radyolojik bulguları, kitlenin özellikleri ve yerleşimi, hastanın yaşı nedeniyle dermoid/ epidermoid kist ön tanısı kuvvetle düşünülmüş olduğundan ve yukarıda özetlenen nedenlerden dolayı İİAB yapılmadı. Bilgisayarlı tomografi (BT) kesitlerinde, dermoid kist histolojik özellikleri ile uyumlu olarak, yuvarlak yağ içeren küçük hücre alanları olan kapsüllü bir kitle olarak görülebilir. Bu yüksek yağ içeriği, lipom ya da liposarkom dışında diğer lezyonlarda bulunmaz ve dermoid/ epidermoid kistin ayırıcı tanısındaki önemli radyolojik bulgulardır. Sublingual bölgede, boyutları yavaşça artan fakat fluktuasyon veren, iğne aspirasyonunda koyu kıvamlı müküs olan kistik kitlelerde ayırıcı tanıda ranula düşünülmelidir ve dermoid/ epidermoid kistin ayırıcı tanısında düşünülmelidir.

Dermoid kistler genellikle tek bir kitle olarak bulunmalarına rağmen bizim olgumuzda olduğu gibi aynı lokalizasyonda birbirine komşu 2 adet dermoid kistin nadir yerleşimine de rastlanılmaktadır.

Dermoid kistler genellikle yumuşak kıvamlı kitlelerdir, fakat kist içeriğine bağlı olarak fluktuasyon gösterebilirler [14].

Dermoid kistler benign olmalarına rağmen, nadiren skuamöz hücreli karsinomaya dönüşebilirler [14]. Özellikle lezyonun uzun süre ağızda kalması ve döşeyici epitelin neoplazik özellik kazanması ile bu durumun oluşabileceği düşünülmektedir.

Dermoid kistlerin tedavisi cerrahidir ve cerrahi kitlenin boyutuna ve yerleşimine göre intraoral, ekstraoral ve servikal yaklaşım ile yapılabilir. Bu lezyonların, mylohyoid ve geniohyoid kaslara göre olan konumları klinik bulguların oluşumu ve cerrahi tekniğin belirlenmesinde önemlidir. Dermoid kist lokalizasyonunu geniohyoid kasa göre değerlendiren otör grubuna göre geniohyoid kasın yüzeyindeki dermoid kistlerde uygun cerrahi yaklaşım servikal yaklaşım iken aynı kasın derinindeki dermoid kistlerde ise intraoral yaklaşım tercih edilmektedir [2,6]. Servikal yaklaşımın, özellikle submental ve submandibular bölgeyi dolduran büyük kistlerde, komşu yapılara daha hakim olunabilmesi, kanama kontrolünün daha iyi yapılabilmesi ve intraoral kontaminasyonun önlenmesi gibi

avantajları da vardır [2].

Diğer otör grubuna göre ise gerek klinik bulgular ve gerekse cerrahi yaklaşımın belirlenmesinde kistin mylohyoid kasa göre olan lokalizasyonu önem taşımaktadır. Bizim olgumuzda da geniohyoid kas derininde, mylohyoid kasın altında yerleşmiş, submandibuler bölgeyi dolduran, kısmen ağız tabanına uzanım gösteren 2 adet kistik kitle intraoral yaklaşım ile başarılı bir şekilde eksize edildi. Bazen kistin büyüklüğe bağlı olarak her iki yöntem de kullanılmaktadır. İntraoral yaklaşım iyi kozmetik ve fonksiyonel sonuçlar doğurmaktadır. Dev kistlerde ise marsupializasyon alternatif bir yöntem olarak kullanılabilir.

King ve arkadaşları literatürdeki 195 ağız tabanı dermoid kist olgusunu gözden geçirmişler, cerrahi uygulanan 120 olgunun %58' inde intraoral, %31' inde servikal ve %11' inde her iki yaklaşımın birlikte kullanıldığını belirlemişlerdir [15].

Enfeksiyon mevcutsa; epitelin koterizasyonu önerilmektedir [16].

Literatürde kist içeriğinin fibrovasküler doku için iritan olduğu ve cerrahi sonrası dönemde enflamasyona sebep olabileceği bildirilmiştir. Bizim olgumuzda ise; kistler tam olarak çepiri ile birlikte çıkarılmıştır [9,17].

Kistin tam rezeksiyondan sonra prognoz çok iyidir ve nüks çok nadirdir.

Sonuç

Sonuç olarak; ağız tabanında, orta hatta görülen yumuşak kıvamlı kitlelerde ayırıcı tanıda dermoid kist akla gelmeli ve ayrıntılı bir anamnez, FM, radyolojik ve laboratuvar bulguları sonucunda kist eksize edilmelidir. Bizde bu olgu sunumunda kliniğimize 2 aylıkken başvuran ve intraoral cerrahi yaklaşım ile tedavi edilen erken semptomatik olan dermoid kistli pediatrik olguyu sunduk.

Kaynaklar

1. Şeşen T ve ark. Dev sublingual dermoid kist olgusu. Journal of Experimental and Clinical Medicine. 2008;25(4):160-4.
2. Makos C et al. Dermoid cysts of the floor of the mouth: Two case reports. Case Reports in Medicine. 2011; 362170.
3. Turetschek K, Hospodka H, Steiner E. Case Report: Epidermoid cyst of the floor of the mouth: Diagnostic imaging by sonography, computed tomography and magnetic resonance imaging. Br J Radiol 1995; 68: 205-7.
4. Verma S et al. Giant sublingual epidermoid cyst resembling plunging ranula. Natl J Maxillofac Surg. 2012; 3: 211-3.
5. Jha AK, Sahoo NK. An unusual case of submental epidermoid cyst in a ten years old child: A case report. IJCRI 2011; 2:10-13.
6. Lima SM Jr et al. Dermoid cyst of the floor of the mouth. Scientific World Journal. 2003; 3 :156- 62.
7. Hiremath R et al. A Rare Case of a Submental Epidermoid Cyst: A Case Report. Journal of Clinical and Diagnostic Research 2011;5:1452-53.
8. İlhan H. Yenidoğanda Teratom. Türkiye Klinikleri J Pediatr Surg-Special Topics 2008; 1:78 83.
9. Bhandary SK, Bhat V, Shenoy MS. Sublingual epidermoid cyst-a case report. Health 2010;2: 613-14.
10. George L. Coppit, Jonathan A. Perkins, Scott C. Manning, Nasopharyngeal teratomas and dermoids: a review of the literature and case series. International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology 2000; 52: 219-27.
11. Bonet-Coloma C et al. Orofacial dermoid cysts in pediatric patients: A review of 8 cases. Med Oral Patol

- Oral Cir Bucal. 2011; 16: 200-3.
12. Matthias W et al. Oropharyngeal dermoid cyst in an infant with intermittent airway obstruction, a case report. *Neuroradiol J.* 2014; 27: 627-31.
 13. Lin HW, Silver AL, Cunnane ME, Sadow PM, Kieff DA. Lateral dermoid cyst of the floor of mouth: unusual radiologic and pathologic findings. *Auris Nasus Larynx* 2011; 38: 650-3
 14. Kayhan FT, Aydin YZ, Babalioglu M. A nasopharyngeal dermoid causing neonatal airway obstruction. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 1997; 40: 195-201.
 15. King RC, Smith BR, Burk JL. Dermoid cyst in the floor of the mouth. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994; 78: 567-76.
 16. Musgrove JE. Sublingual dermoid cyst. *Can Med Assoc J.* 1950; 63: 490-1.
 17. De Ponte FS et al. Sublingual epidermoid cyst. *J Craniofac Surg* 2002; 13: 308-310.