

OLGU BİLDİRİLERİ / CASE REPORTS

Bir Olgu Nedeniyle Mikst Larengopiyosel

B. Veyseller, A. Koç, M. Bilgili, T. Ersözlü, T. Han

Mixed Laryngopyocele: A Case Report

A laryngocele is an air filled dilatation of the saccule of the larynx. An infected laryngocele is called a laryngopyocele. The etiology is unknown but it might be related to both congenital and acquired factors. These lesions are usually asymptomatic and are incidentally discovered during radiologic studies for unrelated conditions. Symptomatic laryngoceles are unusual lesions. A case of laryngopyocele presenting with an upper airway obstruction is discussed with a review of the anatomy, etiology, clinical course and the management.

Key Words: Larynx, laryngopyocele.

Özet

Larengosel, larenks sakkülünün içi hava ile dolu dilatasyonudur. İnfekte larengosel, larengopiyosel olarak adlandırılmaktadır. Etiyolojisi bilinmemektedir, fakat hem konjenital hem de edinsel faktörler ile ilişkisi olabilir. Bu yapılar asemptomatiktir ve başka nedenlerle yapılan radyolojik incelemelerde tesadüfen saptanır. Semptomatik larengoseller nadir lezyonlardır. Üst hava yolu obstrüksiyonu ile başvuran bir larengopiyosel olgusu, bu lezyonun anatomisi, etiyolojisi, klinik seyri ve tedavisi gözden geçirilerek tartışıldı.

Anahtar Sözcükler: Larenks, larengopiyosel.

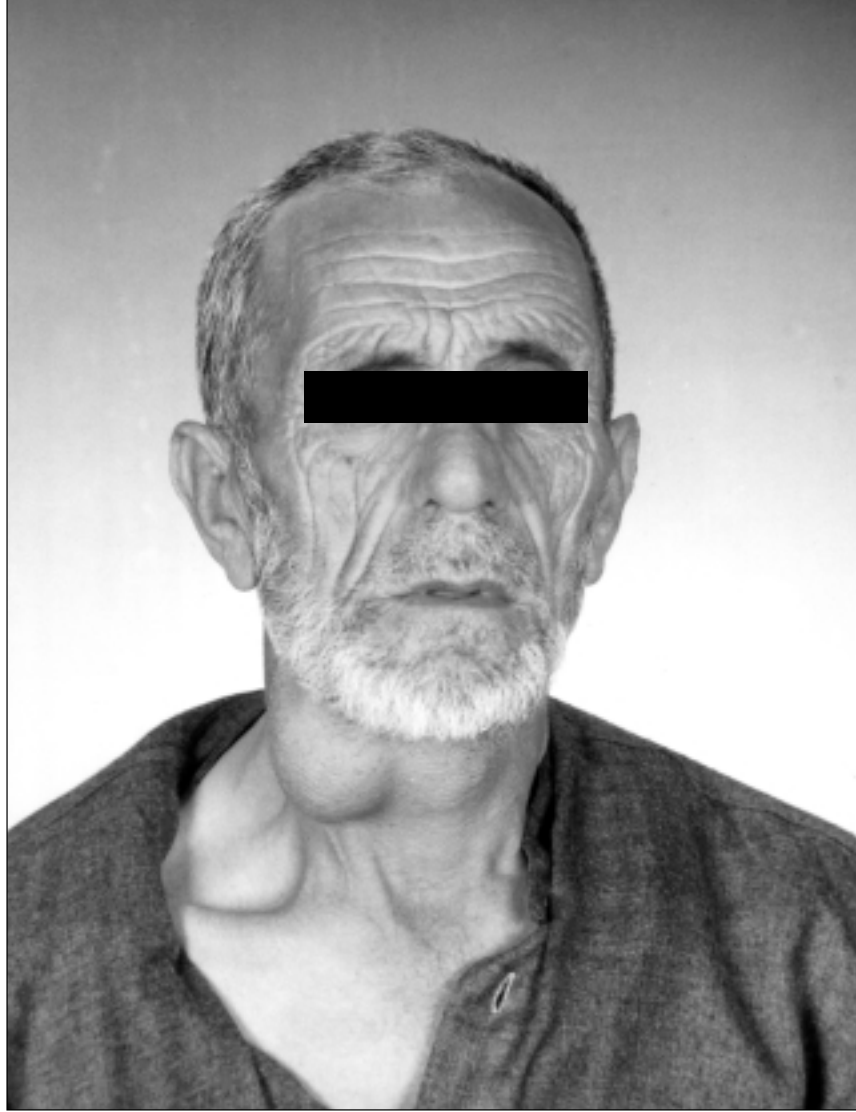
Turk Arch Otolaryngol, 2003; 41(1): 36-41

Türk Otolarengoloji Arşivi, 2002; 2003; 41(1): 36-41

Giriş

Morgagni (1741) larengeal ventrikülü, larenks anterolateral duvarında ufak bir girinti olarak tanımlamıştır.¹ 1837'de Hilton larengeal appendiks veya sakkül olarak adlandırılan, ventrikül dibinde uzanan çıkmazı göstermiştir. Larengeal açıklığa bir bağlantısı olan sakkülün anormal dilatasyonu 1829'da Larrey tarafından tanımlanmış olmasına rağmen Wirchow 1867'de ilk olarak larengosel terimini kullanmıştır.²⁻⁵ Mukus ile dolu larengosele larengomukosel veya sakküler kist ismi verilmektedir. Larengomukosel üzerine eklenen infeksiyon larengopiyosel oluşumuna neden olmaktadır. Larengopiyosel oldukça nadir görülen bir patoloji olup, 1996 yılında yapılan bir çalışmada toplam 34 olgu bildirildiği rapor edilmiştir.⁶

Nadir görülmesi ve ciddi komplikasyonu ile fatal seyredebilmesi nedeni ile kliniğimizde teşhis



Resim 1. Boyun sađ yanında 6x5 cm boyutunda şişlik.

edilen ve tedavisi yapılan bir larengopiyosel olgusu literatür bilgileri ışığında tartışılmıştır.

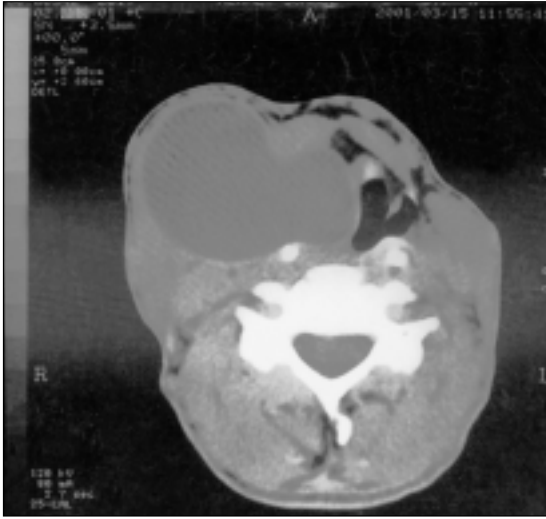
Olgu

57 yaşında erkek hasta, boyunda şişlik, ağrı, ses kısıklığı, nefes darlığı, ateş ve ağrılı yutma şikayetleri ile kliniğimize başvurdu. Hasta, şişliğin 10 yıldır

olduğunu ancak ağrı, nefes darlığı ve ses kısıklığı şikayetlerinin son beş gündür arttığını ve ateş şikayeti eklendiğini ifade ediyordu. Fizik muayenede boyun sađ yanında, orta juguler bölgede yaklaşık 6x5 cm boyutunda, dokunma ile hassasiyet gösteren, üzerini kaplayan ciltte hafif ısı artışı ve duyarlılığı olan yumuşak kıvamda kitle saptandı (Resim 1). İndirekt larengoskopik muayenede sađ ariepig-

lottik bandede şişlik görüldü. Sağ vokal kord ventriküler band tarafından örtüldüğünden değerlendirilemedi. Her iki aritenoid hareketleri doğaldı. Diğer KBB muayene bulguları doğaldı.

Ultrasonografide düzgün sınırlı, kistik, içerisinde yer yer hiperekojen alanlar içeren kitle saptandı. Bilgisayarlı tomografisinde (BT) sağ sternokleidomastoid kas medialinde, damar sinir paketinin anteriorunda yer alan 3 x 4 x 5 cm boyutlarında düzgün sınırlı kistik dansitede lezyon görüldü. Kitle epiglotttan başlayıp larenksi sola deplase ediyordu ve larengeal pasajı daraltan kitlenin hem intra hem de ekstralarengeal komponenti olduğu görüldü (Resim 2).



Resim 2. Sağ SKM medialinde, damar sinir paketi önünde 3x4x5 cm boyutunda düzgün sınırlı kistik kitle intralarengeal uzanımı mevcuttur.

Tam kan sayımında lökositoz (10.500/mlt) ve polimorf nüveli lökosit hakimiyeti olduğu saptandı. Bu bulgular ışığında hasta larengopiyosel olarak değerlendirildi ve medikal ve cerrahi tedavi için servisimize yatırıldı.

Kültür almak ve kitle içeriğini dekomprese etmek amacı ile kiste enjektör ile girildi. 25 cc pürülan materyal boşaltıldı ve bu materyalden yapılan kültürde *Staphylococcus aureus* üredi. Hastaya kültür sonucu beklenmeden hem aerop hem de ana-

erop etkinliği olan ampisilin sulbaktam (1 gram günde 4 defa) başlandı. Kist aspirasyonu ve medikal tedavi sonrası ateş düştü ve lökositoz geriledi. Hasta hospitalizasyonunun 3. gününde genel anestezi altında opere edildi. Operasyona tiroid kartilaj üst kenarı seviyesinde 5 cm'lik horizontal bir cilt insizyonu ile başlandı. Kitleye ulaşılarak çevre yapılardan disseke edildi. İntralarengeal parçasını tam ve kolay şekilde çıkarabilmek için sağ tiroid kartilaj 1/3 üst parçası eksize edildi. Kitle tam olarak çıkarıldı. Hava yolunu garanti altına almak için hastaya trakeotomi açıldı. Dren yerleştirilerek katlar usulüne uygun olarak kapatıldı ve operasyona son verildi.

Çıkarılan kitlenin histopatolojik incelemesinde malignite kriterlerine rastlanmadı. Postoperatif dönemde komplikasyon gelişmeyen hasta operasyonun 5. gününde dekanüle edildi ve 7. günde taburcu edildi.

Tartışma

Larengesel, larengeal ventrikül sakkülünün hava ile dolu dilatasyonudur. Larengeal appendiks olarak bilinen larengeal sakkül, larengeal ventrikülün ön kısmının tavanından vertikal olarak dışarıya cepleşmesidir.

Larengesel, tirohiyoid membranla olan ilişkisine göre internal, eksternal ve mikst olarak sınıflandırılmaktadır. Internal larengesel yalancı vokal kord ve ariepiglottik band mukozası altında uzanır ve tirohiyoid membranı geçmez. Eksternal larengesel ise superior larengeal arter ve superior larengeal sinirin internal dalının girdiği yerden tirohiyoid membranı delerek lateralde boyuna doğru ilerler. Her ikisi bir arada bulunduğu anda ise mikst larengesel olarak isimlendirilir.

Literatür gözden geçirildiğinde larengosellerin %44'ü mikst, %30'u internal ve %26'sının eksternal olduğu görülmektedir. Olguların %23'ünün bilateral olduğu ve en sık olarak 5. dekatta görüldüğü saptanmıştır. Ancak konjenital larengesel olguları da bildirilmiştir. Erkeklerde 7 kat daha sık görülmektedir.^{7,8} Bizim olgumuzda 5. dekkatta olan mikst larengopiyoselli bir erkek hastaydı.

Larengosel etyolojisi tam olarak bilinmemektedir. Üflemler çalgı çalan sanatçılar, sokak satıcıları ve cam üfleyciliği gibi intralarengeal basıncı arttıran meslekleri yapanlarda daha sık olarak görülmektedir. Sigara veya astım nedeni ile kronik öksürük, larengosel oluşumunu kolaylaştırır. Hastamızın sorgulamasında çiftçi olduğu, larengosel etyolojisini açıklayacak bir uğraşta bulunmadığı saptanmıştır.

Larengoseller larenks yassı epitel hücreli kanserleri ile beraber görülebilmektedir. Literatürde bu sıklık %4.9'dan %28.8'e kadar değişmektedir.⁹ Bizim hastamızdan elde edilen patolojik piyesin incelemesinde basit bir infekte kistik yapı olduğu ve habis bir gelişim olmadığı görülmüştür.

Larengosel tanısı hastalığın başlangıcında şikayetlerin belli belirsiz olması ve hızla kaybolması nedeni ile zor olmaktadır. Boyun kitlesi bastırmakla kayboluyorsa ve Valsalva manevrasıyla büyüyorsa akla larengosel gelmelidir. İndirekt larengoskopide bandda dolgunluk görülür. Konvansiyonel radyografiler ileri boyutlardaki olgularda yardımcıdır ve boyun lateralinde hava dolu kese veya hava sıvı seviyesi gösterilebilir. Bilgisayarlı tomografi ve manyetik rezonans görüntüleme lezyonun tanısında, tipini ve boyutlarını ortaya koymada en iyi yöntemlerdir.

Larengosel ayırıcı tanısında brankial yarık kistleri, tiroglossal duktus kisti, kistik higroma, pseudo larengosel ve trakeoseller girmektedir. Brankial yarık kistlerinin çoğu 2. brankial yarıktan kaynaklanmaktadır ve unilateral sternokleidomastoid kas altında lateral boyun kitlesi oluşturmaktadır. Brankial yarık kistleri ultrasonografisinde iyi sınırlı hipoekoik lezyonlar olarak görülmektedir, BT'de ise karakteristik olarak karotis arteri posteriora, sternokleidomastoid kası posterolaterale ve submandibüler glandı anteromediale iten basit bir kistik yapı olarak görülmektedir. Tiroglossal duktus kisti foramen çekumdan tiroid lojuna inen tiroidin embriyolojik kalıntılarıdır. Tiroglossal kistlerin çoğu orta hatta hiyoid kemiğin hemen altındadır ve yutkunma ile hareket etmeleri karakteristiktir. Kistik higroma, boyunda ünilateral veya bilateral görülebilen lenfatik

malformasyonlardır. Ultrasonografide ise multiloküler, ince duvarlı kistler olarak görülmektedir. Psödolarengoseller tüberküloz, sifiliz veya ileri evre larengal kanserlerde görülür. Hastalık larengal kartilajlar yolu ile boyun subkütanöz sahalarına yayılıp hava dolu kaviterler oluşturduğunda larengoseli taklit edebilmektedir.¹⁰ Trakeoseller nadir görülen patolojilerdir ve sıklıkla multipl olup, larenks distalinden kaynaklanmaktadır.⁷

Bizim olgumuzda kitlenin boyun lateralinde yer alması, başlangıçta bastırıldığında kaybolması ve ıkındığında belirgin hal alması, BT'de tirohiyoid membranı delerek larenks içine ulaşması gibi bulgular larengopiyosel tanısına kolayca ulaşmamızı sağlamıştır.

De Santo, 1974'te larengoselden larengopiyoselle uzanan klinik formlarını tanımlamıştır. Önceden var olan bir larengosel glandüler sekresyon stazı ile larengomukosele dönüşmekte ve ardından bakteriyel kontaminasyon ile larengopiyosel oluşmaktadır.¹¹ Bizim olgumuzun da larengoselden larengopiyoselle ilerlemiş olduğu görülmektedir.

Normalde gland muküs sekresyonu ventriküler açıklığa drene olmaktadır. Ancak larengal travma, tümör veya kronik inflamasyon, appendiks boyunda inkomplet bir stenoza yol açarak bu sekresyonların larengosel içerisinde birikmesine yol açabilir.^{6,12} Kist içerisindeki mukus stazı ve bozulmuş mukosilier temizleme mekanizması *S. aureus*, beta hemolitik Streptokoklar, *E. coli* ve *P. aureginosa* gibi bakterilerin infeksiyonuna zemin hazırlamaktadır. Bizim hastamızın hikayesinde şişliğin 10 yıldan beri var olduğu ve başlangıçta üzerine basıldığında kaybolduğunu ve ıkındığında belirgin hal aldığını bildirmektedir. Ancak 1 yıldır şişliğin kaybolmadığını ve son 5 gündür ağrı ve cilt üzerinde kızarıklık oluştuğunu bildiriyordu. Bu hikaye ile hastamızda olayın bir larengosel olarak başladığı ve sonrasında zamanla larengal appendiks boyunda oluşan stenoz nedeni ile larengomukosel ve akabinde infeksiyon eklenmesi ile larengopiyoselle ilerlediği anlaşılmaktadır. Hastamızdan alınan aspirat materyalinde infeksiyon etkeninin *S. aureus* olduğu saptanmıştır.

Larengosellerde tedavi lezyonun tipine göre değişmektedir. Küçük internal larengosellerin endoskopik olarak rezeksiyonu veya marsüpiyalizasyonu yeterlidir.¹³ Eksternal veya mikst tipler ise eksternal yaklaşım ile tedavi edilmelidir. Larengopiyoseller ise ciddi komplikasyonları nedeni ile sadece eksternal yaklaşım ile tedavi edilmelidir.¹² Bizim olgumuzda da hem mikst olması hem de piyojenik bir hadise olması nedeni ile eksternal yaklaşımı tercih ettik.

Larengopiyosel komplikasyonlarından en önemlisi akut respiratuar hasara yol açabilecek pürülan materyalin aspirasyonudur. Böyle bir durum klinik olarak ölümcül olabileceğinden klinik ve cerrahi bir acil olarak düşünülmelidir. Pürülan materyalin aspirasyonunu engel olmak için kist içeriğinin düzenli aspirasyonu yanı sıra antibiyotik ve kortikosteroid tedaviye derhal başlanmalıdır. Ek olarak bu aspiratlardan alınan kültür materyalleri ile yapılan kültür sonucunda spesifik antibiyotik seçimi de sağlanabilir.^{13,14}

Yukarıdaki tedavileri takiben larengopiyosel cerrahi olarak çıkarılmalıdır.¹⁴ Bu tip lezyonlar pürülan materyalin aspirasyonundan mümkün olduğunca kaçınmak için eksternal yaklaşımla çıkarılmalıdır. Entübasyon mümkün olduğunca dikkatli yapılmalıdır, çünkü kaza ile kistin patlatılması içeriğin aspirasyonuna yol açabilir. Eksternal yaklaşımda tirohiyoid membran hizasından yapılan horizontal servikal insizyon kullanılması mükemmel bir cerrahi ekspozisyon sağlar. Stell ve Maran tarafından bildirilen teknikte tirohiyoid, sternohiyoid kaslar ve tirohiyoid membran kesilerek ve tiroid kartilaj üst parçası lezyon tarafından çıkarılarak geniş bir şekilde lezyon ortaya konulur ve eksizyon sağlanır.¹⁰ Literatürde spontan olarak gerileyen larengopiyosel olgusu bildirilmektedir.¹⁵

Ciddi komplikasyonlara yol açmamak için olgumuzda eksternal yaklaşımı tercih ettik. Cerrahi sırasında rüptür ve aspirasyon olasılığını minimize indirmek ve kültür materyali almak için cerrahi öncesi kist içeriğini aspire ettik. Horizontal bir cilt insizyonu yapılarak cilt altı geçildi ve strep kaslar hi-

yoidden ayrılarak kiste ulaşıldı; tiroid kartilaj 1/3 üst kısmı çıkartarak kistin hem internal hem de eksternal parçalarını ortaya koyduk ve çıkarttık. Hastada internal komponentin oldukça hacimli olması nedeni ile postoperatif solunum sıkıntısını göz önüne alarak hastaya peroperatuar trakeotomi açtık. Literatürde peroperatuar olarak yüksek doz steroid uygulanması ile trakeotomisiz olarak eksternal eksizyon yapılabileceğini bildiren yayınlar mevcuttur.^{9,16} Ancak bizim hastamızın yaşlı olması ve süperatif bir komplikasyon nedeniyle opere ettiğimizden trakeotomi açmayı uygun gördük. Literatürde üst hava yolu tıkanıklığı nedeni ile acil trakeotomi gereken olgularda bildirilmektedir.¹⁷

Sonuç olarak larengopiyosel püy aspirasyonu gibi önemli bir komplikasyon ile yaşamı tehdit edebileceğinden dikkatli olarak değerlendirilip hemen tedavi edilmesi gereken otolarenolojik acillerden biridir.

Kaynaklar

1. **Maharaj D, Fernandes CM, Pinto AP.** Laryngopyocele (a report of two cases). *J Laryngol Otol* 1987; 101: 838-42.
2. **Broyles EN.** Anatomical observations concerning the laryngeal appendix. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1959; 68: 461-70.
3. **Holinger LD, Barnes DR, Smid LJ, Holinger PH.** Laryngocele and saccular cysts. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1978; 87: 675-85.
4. **Liard P, Lehmann W.** Pyolaryngocele. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac* 1988; 105: 531-4.
5. **Danish HM, Meleca RJ, Dworkin JP, Abbarah TR.** Laryngeal obstructing saccular cysts: a review of this disease and treatment approach emphasizing complete endoscopic carbon dioxide laser excision. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1998; 124: 593-6.
6. **Marcotullio D, Paduano, F, Magliulo G.** Laryngopyocele: an atypical case. *Am J Otolaryngol* 1996; 17: 345-8.
7. **Canalis RF, Maxwell DS, Hemenway WG.** Laryngocele- an update review. *J Otolaryngol* 1977; 197: 191-9.
8. **Civantos FJ, Holinger LD.** Laryngoceles and saccular cysts in infants and children. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1992; 118: 296-300.
9. **Hafız G, Güldiken Y, Oysu Ç, Aslan İ, İşeri M, Yazıcıoğlu E.** Üç olgu nedeniyle larengosel. *Kulak Burun Boğaz İbtis Derg* 1995; 2: 434-43.
10. **Stell PM, Maran AG.** Laryngocele. *J Laryngol Otol* 1975; 89: 915-24.
11. **DeSanto LW.** Laryngocele, laryngeal mucocele, large saccules, and laryngeal saccular cysts: a developmental spectrum. *Laryngoscope* 1974; 84: 1291-6.
12. **Gregor RT, Loftus B, Cohen P, Balm AJ, Hilgers FJ.** Saccular mucocele in association with laryngeal cancer. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1994; 103: 732-6.

- 13. Luzzago F, Nicolai P, Tomenzoli D, Maroldi R, Antonelli AR.** Laryngocele: analisi di 18 casi e revisione della letteratura. *Acta Otorinolaryngol Ital* 1990; 10: 399-412.
- 14. Cassano L, Lombardo P, Marchese-Ragona R, Pastore A, Marchese Ragona R.** Laryngopyocele: there new clinical cases and review of the literature. *Eur Arch Otorbinolaryngol* 2000; 257: 507-11.
- 15. Sütay S, Güneri EA, Günbay MU.** Spontaneous regression of a symptomatic laryngopyocele. *J Laryngol Otol* 1994; 108: 60-2.
- 16. Babb MJ, Rasgon BM.** Bilateral laryngocele. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2000; 126: 551-4.
- 17. Pennings RJ, van den Hoogen EJ, Marres HA.** Giant laryngoceles: a cause of upper airway obstruction. *Eur Arch Otorbinolaryngol* 2001; 258: 137-40.

İletişim Adresi: Dr. Bayram Veyseller
Haseki Eğitim ve Araştırma Hastanesi
KBB Kliniği Haseki - İSTANBUL