

# Torakoskopska plikacija ošita u dojenčeta s eventracijom dijafragme

Dorotea Sinjeri<sup>1</sup>, Dino Papeš<sup>1,2</sup>, Miram Pasini<sup>1</sup>

*Eventracija ošita je abnormalna elevacija dijela ili cijele hemidijafragme. Može biti kongenitalna i stečena. Oboljelih je 2 do 7 na 100000 živorođenih, a češće se javlja kod dječaka. Eventracija se prezentira simptomima respiratornog ili gastrointestinalnog sustava, a dijagnoza se postavlja na temelju slikovnih radioloških pretraga. Kirurško liječenje indicirano je kod svih simptomatskih pacijenata, a cilj liječenja je ojačati tanku i oslabljenu dijafragmu plikacijom. Pristupi kirurškom liječenju su različiti. Prikazujemo osmomjesečnog dječaka kojemu je eventracija otkrivena obradom tijekom prolongiranog respiratornog infekta, a kojeg smo potom liječili torakoskopskom plikacijom s dobrim dugoročnim ishodom.*

**Ključne riječi:** EVENTRACIJA DIJAFRAGME; TORAKOSKOPIJA; DOJENČE

## UVOD

Dijafragmalna eventracija je abnormalna elevacija dijela ili cijele hemidijafragme. Najčešće se radi o poremećaju razvoja dijafragme, tj. poremećaju migracije mioblasta u embrionalne strukture koje doprinose razvoju dijafragme: septum transversum i pleuroperitonealnu membranu, dok je sama dijafragma cjelovita i urednih anatomske hvatišta za rebra (1). Stečena eventracija posljedica je ozljede, tumora ili druge patologije freničnog živca što onda uzrokuje paralizu i paradoksalne pokrete dijafragme. Tako se ošit pri inspiriju giba prema gore, a pri ekspiriju prema dolje (2). Oboljelih je 2 do 7 na 100000 živorođenih, a češće se javlja kod dječaka (3). Različiti su podaci o učestalosti eventracije s lijeve i desne hemidijafragme (1, 4). Klinička slika može biti asimptomatska ili se može prezentirati simptomima respiratornog ili gastrointestinalnog sustava. Najčešće se manifestira unutar prva tri mjeseca života kao tahipneja i dispneja, povraćanje, učestale respiratorne infekcije, kašalj (1, 4). Za razliku od eventracije, dijafragmalna hernija je defekt dijafragme kroz koji prolaboraju abdominalni organi u prsni koš te je gotovo uvijek simptomatska, a često i životno ugrožavajuće stanje (5). Dijagnoza se postavlja na temelju kliničke slike, rendgena pluća (RTG), ultrazvuka, fluoroskopije, kompjuterizirane tomografije (CT) ili magnetske rezonance. Kombinacijom navedenih pretraga mogu se razlikovati dijafragmalna hernija i eventracija. RTG pluća je prva dijagnostička pretraga kojom se vidi abnormalno visoki položaj dijafragme s in-

traabdominalnim organima u toraksu i njome se ne može razlučiti radi li se o kongenitalnoj eventraciji ili paralizi ošita (1, 2). Rekonstrukcija dijafragme metoda je liječenja kod svih simptomatskih pacijenata. Pristup može biti torakotomijom, laparotomijom, te minimalno invazivnom tehnikom, laparoskopijom ili video asistiranom torakoskopijom (1). U Hrvatskoj literaturi do sada nije zabilježen torakoskopski pristup liječenju eventracije ošita kod djece te stoga prikazujemo prvi takav slučaj kod nas.

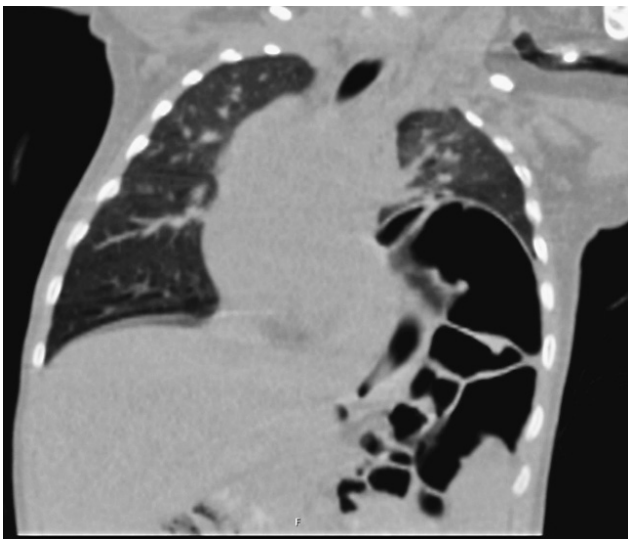
## PRIKAZ BOLESNIKA

Do sada zdravo, terminski rođeno muško dojenče, u dobi od 7 mjeseci liječeno je radi prolongiranog respiratornog infekta. U statusu nije imao deformitet prsnog koša, nad plućima je s lijeve strane auskultatorno bila čujna peristaltika te oslabljen šum disanja. U ostalom somatskom statusu je imao ptozu lijevog kapka. RTG snimkom pluća, a potom i CT-om toraksa nađu se crijevne vijuge u lijevom prsištu koje dopiru do 3. interkostalnog prostora s pomakom medijastinalnih struktura u kontralateralnu stranu (Slika 1).

<sup>1</sup> Klinički bolnički centar Zagreb<sup>1</sup>, Kišpatičeva 12, Zagreb  
<sup>2</sup> Medicinski fakultet Sveučilišta u Zagrebu, Šalata 2, Zagreb

### Adresa za dopisivanje:

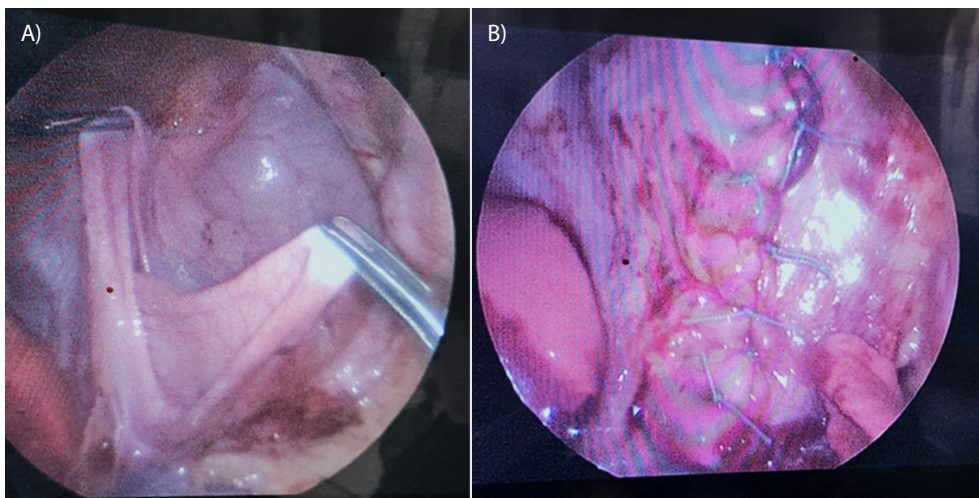
Miram Pasini, dr. med., Klinika za kirurgiju, KBC Zagreb, Kišpatičeva 12, 10000 Zagreb, e-mail: miram.pasini@gmail.com



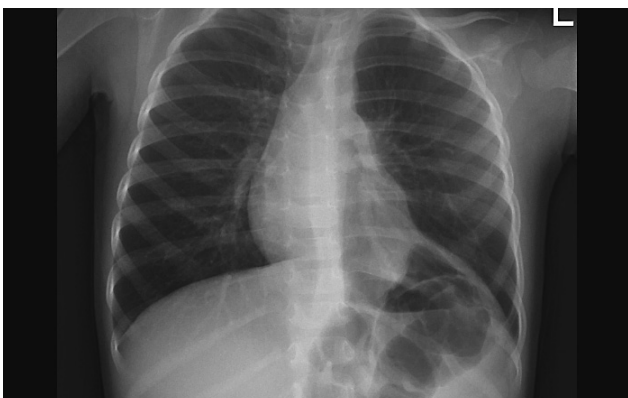
SLIKA 1. MSCT toraksa: slika prikazuje dijafragmu koja s lijeve strane doseže 3. interkostalni prostor. Crijevne vijuge su u lijevoj hemitoraksu s tankom dijafragmom ili kilnom vrećom. Nema infiltrata u plućima.

Nakon sanacije respiratorne infekcije elektivno je operiran u dobi od 8 mjeseci i tjelesne težine 7,2 kilograma. U općoj anesteziji uz jednoluminalnu endotrahealnu intubaciju s namještanjem djeteta na desnom boku, tik uz donji rub skapule, otvoreno je postavljen prvi 3,5 mm troakar i teleskop. Eksploracijom lijevog prsišta vizualizira se eventracija lijevog ošita (Slika 2A) koja zauzima dvije trećine toraksa, uz kompresiju oba plućna režnja i atelektazom donjeg. Uz arteficialni pneumotoraks ugljičnim dioksidom pod tlakom od 5 mm Hg postignemo spuštanje elevirane dijafragme na normalnu razinu nakon čega postavimo druga dva 3.5 mm troakara. Plikaciju ošita po tipu invaginacije učinili smo pojedinačnim polieterskim šavima 3-0 od medijalno prema lateralno, izbjegavajući frenični živac. Najlateralniji šav postavili smo povratno oko rebra (Slika 2B).

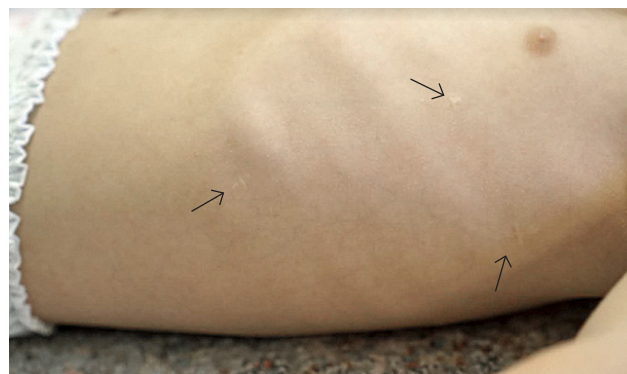
Operacija je trajala 150 minuta, a postoperativno je dječak intubiran smješten u jedinicu intenzivnog liječenja. Dva sata po operaciji razvija obostrani pneumotoraks, desno lamelarni, a lijevo uz subkutani emfizem, radi čega je kroz mjesto



SLIKA 2. A) Intraoperativni prikaz suvišnog dijela dijafragme; B) Intraoperativni prikaz zategnute dijafragme nakon plikacije.



SLIKA 3. RTG toraksa 17 mjeseci nakon operacije.



SLIKA 4. Prikaz djeteta 17 mjeseci nakon operacije. Strelicama su prikazani postoperativni ožiljci.

insercije središnjeg troakara postavljen torakalni dren. U daljnjem tijeku se komplicirao prolongiranom bronhoopstrukcijom i abdominalnom distenzijom s prijetecim trbušnim sindromom odjeljka uz održanu diurezu. Uz nastavak dekompresije na nazogastričnu sondu te putem rektalne sonde dolazi do spontane regresije distenzije trbuha i uspostave peristaltike. Dojenče je ekstubirano treći postoperativni dan te stavljeno na neinvazivnu mehaničku ventilaciju visokim protokom kisika na nosnice. Od šestog postoperativnog dana dječak diše samostalno te je otpušten kući deseti postoperativni dan. Od operacije je prošlo 17 mjeseci, dijete je bez simptoma i recidiva eventracije s minimalnim postoperativnim ožiljcima (Slika 3, Slika 4).

## RASPRAVA

Kongenitalna dijafragmalna eventracija je rijetka bolest koja čini oko 5% ukupne patologije dijafragme (6). Učestale respiratorne infekcije uz dispneju i povraćanje jedan su od najčešćih simptoma kongenitalne dijafragmalne eventracije prema Wu-u i suradnicima koji su liječili 177 djece (4). Asimptomatska djeca nisu rijetkost, otkriju se slučajno radiološkim slikama i kliničkim pregledom radi drugih stanja, no takvi ne zahtijevaju kirurško liječenje (1). Kod našeg pacijenta eventracija je otkrivena nakon prve epizode prolongirane respiratorne infekcije. Uz eventraciju mogu biti prisutne i druge kongenitalne anomalije (hipoplazija pluća, srčane greške, ektopija bubrega, traheomalacija i dr.), a može se javiti i u sklopu Beckwith-Wiedemannova, Polandova, Jarcho Levinova sindroma te kao posljedica citomegalovirusne infekcije i raznih kromosomopatija (7). Uz to u literaturi se spominje i kontralateralna ptoza kapka kao dodatna anomalija koju je imao i naš pacijent, ali s ipsilateralne strane. Iako se na učinjenom MSCT- u toraksa nije vizualizirao ošit ili kilna vreća s lijeve strane, definitivna dijagnoza postavljena je tijekom operacije gdje se vizualiziraju mišićne niti ošita koji je bio jednolike debljine stijenke bez kilne vreće. Kirurško liječenje u obliku rekonstrukcije dijafragme indicirano je uvijek kada postoje simptomi eventracije (1). Cilj plikacije je ojačati tanku i oslabljenu dijafragmu kako bi se povećala njena rigidnost, uklonila paradoksalna pokretljivost tijekom respiracije i dobila potpuna reekspanzija te normalna fiziološka funkcija pluća (8). Prvu uspješnu plikaciju ošita izveo je *Jean Louis Petit* 1923. godine na odrasloj osobi, a 1946. godine *Bisgard* uspješno operira eventraciju ošita djeteta. Od tada se razvijaju brojne tehnike i pristupi kirurškom liječenju eventracije (1). Tako su prvu video asistiranu plikaciju opisali *Gharagozloo i sur.* 1995. godine (9). Tradicionalno se plikacija izvodila torakotomijom ili laparotomijom. Posterolateralna torakotomija podrazumijeva rez kroz šesti, sedmi ili osmi interkostalni prostor, no i ozljedu rebara i prolongiranu postoperativnu bol (10, 11). Abdominalni pristup osigurava dobar

pregled obje hemidijafragme kroz jedan rez, manje je traumatski s obzirom da ne oštećuje rebra te omogućuje pregled trbuha što je korisno kod pacijenata s gastrointestinalnim simptomima. Prednosti laparoskopjske plikacije su dobra vizualizacija, dovoljno prostora za manevriranje, ne zahtjeva ventilaciju jednog plućnog krila te ne izaziva ozljedu rebara (10). *Zhao i sur.* su komparirajući torakoskopski i torakotomijski pristup na 125 pedijatrijskih pacijenata s eventracijom ošita pokazali da u skupini onih pacijenata liječenih torakoskopski vrijeme operacije bilo je kraće kao i vrijeme potrebno za torakalnom drenažom, vrijeme na mehaničkoj ventilaciji te sveukupnim boravkom u jedinici intenzivne njege, ali i boravkom u bolnici (3). Obzirom da naš bolesnik nije imao gastrointestinalne smetnje, uz mogućnost bolje vizualizacije frenikusa, lakšu manipulaciju ošitom i po repoziciji abdominalnih organa veći radni prostor kao i bolju mogućnost rješavanja potencijalne dijafragmalne hernije, odlučili smo se za torakalni pristup. Nismo koristili tlak ugljikovog dioksida (CO<sub>2</sub>) veći od 5 mmHg što je sigurna granica u dječjoj dobi bez uzrokovanja jatrogene hiperkarnije i acidoze (12). Postoji više tehnika plikacije: jednostavno plisiranje dijafragme, invaginirajuća tehnika, dvostrukim obodnim šavom te ekscizija dijafragme otvorenom metodom ili mehaničkim šivačem (staplerom) (9). Mi smo plikaciju učinili pojedinačnim intrakorporalnim šavima što čini operaciju dužom u odnosu na druge navedene i rjeđe korištene metode resekcije ošita. Pneumotoraks, subkutani emfizem, hematotoraks, pleuralni izljev, pneumonija, abdominalni kompartment sindrom i recidiv su moguće komplikacije kirurške plikacije (8, 10). Obostrani pneumotoraks kod našeg pacijenta vjerojatno je posljedica plućne manualne ventilacije povišenim tlakovima u svrhu rješavanja atelektaze donjeg plućnog režnja. Kako incijalno prsište nije drenirano klinički se pneumotoraks prezentirao lijevostranim subkutanim emfizemom torakalne stijenke. Pacijent je imao i prolazni porast intraabdominalnog tlaka (do 20 cmH<sub>2</sub>O) s distenzijom abdomena i održane diureze. Intraabdominalni tlak je indirektno mjeren preko urinarnog katetera. Uz nazogastričnu i rektalnu sondu postepeno dolazi do smanjene distenzije trbuha, a po ekstubaciji i normalizaciji intraabdominalnog tlaka. Obzirom na malu pojavnost bolesti nema randomiziranih kliničkih studija koje bi pokazale prednosti abdominalnog ili torakalnog pristupa. Sistemski pregledi s osvrtom na stopu recidiva kao ishod nisu našli razliku između torakalnog i abdominalnog pristupa (13). Odluka o vrsti plikacije i pristupu ovisi o iskustvu operatera, u našem slučaju uz insuflaciju CO<sub>2</sub> imali smo dovoljno radnog prostora za napraviti invaginirajuću plikaciju ošita pazeći na dubinu uboda kod svakog šava kako bi izbjegli ozljedu intraabdominalnih organa. Kod našeg slijedećeg pacijenta s eventracijom ošita kojem smo radili torakoskopsku plikaciju odlučili smo se za nepotpunu intraoperativnu reekspanziju do-

njeg plućnog režnja s atelektazama uz incijalnu drenažu prišta u svrhu sprečavanja potencijalnog pneumotoraksa.

## LITERATURA

1. Groth SS, Andrade RS. Diaphragmatic eventration. *Thorac Surg Clin.* 2009;19:511-19.
2. Verhey PT, Gosselin MV, Primack SL, Kraemer AC. Differentiating diaphragmatic paralysis and eventration. *Acad Radiol.* 2007;14:420-5.
3. Zhao S, Pan Z, Li Y, An Y, Zhao L, Jin X, Fu J, Wu C. Surgical treatment of 125 cases of congenital diaphragmatic eventration in a single institution. *BMC Surg.* 2020;20:270.
4. Wu S, Zang N, Zhu J, Pan Z, Wu C. Congenital diaphragmatic eventration in children: 12 years' experience with 177 cases in a single institution. *J Pediatr Surg.* 2015;50:1088-92.
5. Moreno-Galarraga L, Bardaji C, Herranz Aguirre M, Viguria N. Diaphragmatic pathology in children: Not always an easy diagnosis. *Pediatr Emerg Care.* 2021;37:e767-8.
6. Jurcak-Zaleski S, Comstock CH, Kirk JS. Eventration of the diaphragm. Prenatal diagnosis. *J Ultrasound Med.* 1990;9:351-4.
7. Kulkarni ML, Sneharoopa B, Vani HN, Nawaz S, Kannan B, Kulkarni PM. Eventration of the diaphragm and associations. *Indian J Pediatr.* 2007;74:202-5.
8. Singh G, Rai RK, Pant N, Wakhlu A. Study of thoracoscopic repair of diaphragmatic eventration in children: A case series. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2020;30:692-4.
9. Yalcinkaya I, Evman S, Lacin T, Alpay L, Kupeli M, Ocakcioglu I. Video-assisted minimally invasive diaphragmatic plication: feasibility of a recognized procedure through an uncharacteristic hybrid approach. *Surg Endosc.* 2017;31:1772-7.
10. Groth SS, Andrade RS. Diaphragm plication for eventration or paralysis: a review of the literature. *Ann Thorac Surg.* 2010;89:52146-50.
11. Güvenç BH, Korkmaz M, Avtan L, Sivaci R, Balci C, Ekingen G. Thoracoscopic diaphragm plication in children and indications for conversion to open thoracotomy. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2004;14:302-5.
12. Sato M, Hamada Y, Takada K, Tanano A, Tokuhara K, Hatano T. Thoracoscopic diaphragmatic procedures under artificial pneumothorax. *Pediatr Surg Int.* 2005;21:34-8.
13. Gupta A, Sidler M, van Poll D, Patel N, Eaton S, Muthialu N, De Coppi P. Thoracic versus abdominal approach to correct diaphragmatic eventration in children. *J Pediatr Surg.* 2020;55:245-8.

## SUMMARY

# Thoracoscopic plication in an infant with eventration of the diaphragm

Dorotea Sinjeri, Dino Papeš, Miram Pasini

*Diaphragmatic eventration is an abnormal elevation of part or the entire hemidiaphragm. It can be congenital or acquired. It occurs in 2 to 7 in 100000 live births and it is more common among boys. Symptomatic eventration is presented with different respiratory or gastrointestinal symptoms. The diagnosis is based on radiological images. Surgical treatment is indicated for all symptomatic patients. The goal is to strengthen the thin and weak diaphragm by plicating the diaphragm itself. Surgical approaches may differ. We present an eight month old boy with eventration who was diagnosed during prolonged respiratory infection. Our treatment approach was thoracoscopic plication of the diaphragm with good long-term outcome.*

**Key words:** DIAPHRAGMATIC EVENTRATION; THORACOSCOPY; INFANT