

BILATERALNE POSTPNEUMOKOKNE PNEUMATOCELE U DEVETNAESTOMJESEČNOG DJEČAKA: PRIKAZ SLUČAJA I PREGLED LITERATURE

MIRNA BAZINA¹, MILJENKO RAOS¹, ANTONELA BAZINA², ĐURĐICA MILKOVIĆ¹, BORO NOGALO¹, MIRJANA TURKALJ¹

Prikazan je devetnaestomjesečni dječak s kliničkom slikom apscendirajuće pneumokokne pneumonije. Uspješno je liječen 10 dana beta-laktamskim antibioticima. Na kontrolnom rengenogramu pluća uočene su dvije prstenaste tvorbe - bilateralne pneumatocele nastale tijekom rezolucije pneumokokne pneumonije. Pravilnog simetričnog izgleda, jedna drugoj „zrcalna slika“, bile su zanimljiv nalaz, rijetko viđen u radiološkoj literaturi. Štoviše, dosad nije opisana pojava pneumatocele kao izolirane komplikacije, bez prisutnih znakova empijema i/ili efuzije, u pneumokoknoj pneumoniji djece.

Deskriptori: PNEUMOKOKNA PNEUMONIJA – radiografija, komplikacije; CISTE – etiologija, radiografija; PLUĆNE BOLESTI – etiologija, komplikacije

UVOD

Plućne pneumatocele su zrakom ispunjene ciste, tanke stijenke koje nastaju unutar plućnog parenhima. Mogu biti pojedinačne emfizematozne lezije, ili, mnogo češće, multiple šupljine ispunjene zrakom nalik na ciste. Najčešće nastaju kao sekvela akutne upale pluća uzrokovane *Staphylococcus aureusom* (1, 2, 3). Opisane su u pneumonijama uzrokovanim *Streptococcus pneumoniae*, *Hemophilus influenzae*, *Escherichia coli*, *Streptococcus skupine A*, *Klebsiella pneumoniae*, *Adenovirusom* i *Mycobacterium tuberculosis* (4–9).

Neinfektivni uzroci pneumatocele su: ingestija hidrogenkarbonata, trauma i ventilacija pluća pozitivnim tlakom (10, 11).

Pneumatocele najčešće nastaju tijekom povlačenja upalne infiltracije pluća, no katkad se mogu uočiti i na prvom radio-

gramu. U najvećem broju slučajeva su asimptomatske, ne uzrokuju smetnje ni potrebu za invazivnim postupcima ili kirurškom intervencijom (9, 10, 11). Prvi stupanj njihovog liječenja jest antibiotsko liječenje pneumonije. Najadekvatniji oblik liječenja je pozorno promatranje u ranim stadijima infekcije, periodično praćenje njenog razvoja sve do potpunog povlačenja. Prirodni tijek pneumatocele jest spontana regresija bez komplikacija (4, 10).

PRIKAZ BOLESNIKA

Devetnaestomjesečni dječak A.P., do ove bolesti nikad hospitalno liječen, razbolio se 15 dana prije primitka u ustanovu: vrućica, kašalj, povraćanje, dispneja. Hospitaliziran je u lokalnoj općoj bolnici zbog pneumonije. Kod prijma je bio urednog nutritivnog statusa za dob (tjelesna masa 13,1 kg, BMI 19,5 kg/m²), febrilan, blijed, dehidriran, dispnoičan, podražajno kašljao. Na plućima auskultacijski krepitacije obostrano. Iz nalaza: CRP 125mg/L, sedimentacija eritrocita 131 mm, broj leukocita 13,9x10⁹/L, segmentirani granulociti 65%, parcijalni tlak kisika 10,0 kPa. Na rengenjskoj snimci pluća upalna

zasjenjenja perihilarno obostrano jače izražena u desnom centralnom režnju (slika 1). Uzeta je hemokultura, a liječenje započeto kristalnim penicilinom G te potom cefalosporinskim antibiotikom. Klinički i laboratorijski nalaz se poboljšavao. U međuvremenu je iz hemokulture izoliran *Streptococcus pneumoniae* osjetljiv na penicilin, amoksicilin, cefuroksim, cefotaksim, ceftriakson. Započeta antibiotska terapija je nastavljena. Desetog dana liječenja na rengenjskoj snimci pluća uočene su dvije cistične šupljine, perihilarno obostrano. Dječak je premješten u specijalističku ustanovu na daljnju obradu. Na dan prijma klinički je bio dobro: afebrilan, bez simptoma respiratornog distresa, kašljao suho. Na plućima slabije čujno disanje, bez hropaca i krepitacija. Iz nalaza: CRP 35,2 mg/L, sedimentacija eritrocita 67 mm, broj leukocita 13,07x10⁹/L, segmentirani granulociti 0,37; nesegmentirani 0,01; limfociti 0,55; monociti 0,04; eozinofili 0,02; broj eritrocita 4,11x10¹²/L, hemoglobin 108 g/L, hematokrit 0,336, trombociti 807x10⁹/L, IgG 9,5 g/L, IgM 1,68 g/L, IgA 1,02 g/L, AST-O 6 kIU/mL, alfa 1 antitripsin 2,13 g/L. Na rengenjskoj snimci pluća vidljive simetrične, oštro ograničene šupljive

¹ Dječja bolnica «Srebrnjak», Srebrnjak 100, 10000 Zagreb

² Klinički bolnički centar «Rebro», Odjel za neurologiju, Kišpatićeva 12, 10000 Zagreb

Adresa za dopisivanje:

Mirna Bazina, dr. med., specijalizantica pedijatrije, Dječja bolnica „Srebrnjak“, Srebrnjak 100, 10000 Zagreb



Slika 1. Difuzna perihilarna alveolarna infiltracija u desnom centralnom režnju.
Figure 1. Diffuse perihilar alveolar density in the right central lobe.



Slika 2. Bilateralne pneumatocele u hilusima veličine cca 3x4 cm.
Figure 2. Bilateral pneumatoceles in both hila cca 3x4 cm.

ne, veličine 3x4 cm svaka, nastale tijekom rezolucije upale plućnog parenhima, tj. bilateralne pneumatocele smještene obostrano perihilarno (slika 2). Obavljena je fleksibilna bronhoskopija da se utvrdi postoji li komunikacija pneumatocele s

bronhalnim stablom. Traheobronhoskopski nalaz je bio uredan, šupljine nisu komunicirale s bronhima. Dječak je podvrgnut medicinskom praćenju i promatranju. Kontrolnim radiološkim praćenjem nakon 7 dana vidljivo je postupno povla-

čenje upale plućnog parenhima i smanjenje pneumatocele (slika 3). Dječak je otpušten urednog kliničkog statusa. Na posljednjoj kontrolnoj snimci pluća snimljenoj nakon sedam mjeseci: desna pneumatocela se potpuno povukla, lijeva i dalje perzistira (slika 4).

RASPRAVA

Pneumatocele, cistične lezije plućnog tkiva, viđene su najčešće tijekom evolucije stafilokokne upale pluća u novorođenčadi i male djece (1, 2, 3). Premda rjeđe, mogu se javiti u upalama pluća uzrokovanim gram negativnim bakterijama, adenovirusima, u pneumoniji uzrokovanoj *Mycobacterium tuberculosis*, *Pneumocystis carinii*, kaustičnom aspiracijom i u djece s mehaničkom ventilacijom (4-13).

Pneumatocele su rijetko viđene u djece s upalom pluća uzrokovanom *Streptococcus pneumoniae* (15). Standardna pedijatrijska literatura opisuje empijem i efuziju, no rijetko pneumatocele kao komplikaciju pneumokokne pneumonije. Dosad je prikazano tek šest slučajeva koji opisuju svega desetero djece s pneumokoknom pneumonijom tijekom čije su se rezolucije pojavile pneumatocele. Jedan od bolesnika imao je Jobov sindrom, dok su drugi do tada bili zdravi (4, 7, 16-18). U navedenim izvješćima pneumatocele nisu bile jedina komplikacija pneumonije, već su bile udružene s nekim oblikom zahvaćenosti pleure; bilo da je bila riječ o efuziji, ili pak o pleuralnom zadebljenju. Prikazali smo dvije, veličinom i oblikom jednake pneumatocele, koje su nastale kao jedina komplikacija pneumokokne pneumonije. Takva pojava pneumatocele, gdje je jedna drugoj „zrcalna slika“, ne samo izgledom već i položajem, rijetko je viđena u radiološkoj literaturi. Štoviše, učinila je ovaj slučaj zanimljivim za prikaz i potaknula nas na pregled literature o pneumatocelama u dječjoj populaciji.

Još od 1950-ih postavljene su mnogobrojne teorije koje su pokušale objasniti mehanizam nastanka pneumatocele. Međutim, sporna mišljenja među autorima i dalje postoje.

Caffey smatra da su pneumatocele vrlo prošireni distalni bronhioli. Drži da je početni događaj upala i oštećenje bronha, što dovodi do nastanka endobronhalne balonske valvule. Posljedica toga je nastanak bronhalne opstrukcije

koja uzrokuje dilataciju distalnih bronhiola i alveola i nastanak pneumatocele (19).

Conway je 1951. godine naglasio značenje peribronhalnog apscesa koji s vremenom rupturira svoj sadržaj u bronhalni lumen. Slično endobronhalnoj balonsko-valvularnoj opstrukciji to dovodi do proširenja dijela bronhalnog stabla distalno od mjesta opstrukcije i oblikovanje pneumatocele (20). Boisset je 1972. godine tvrdio da je pneumatocela vrsta subpleuralnog emfizema. Smatrao je da interlobularni prostor sadrži tzv. „zračne koridore“ koji su povezani sa pleuralnom šupljinom. Zrak iz dišnih putova „pobjegne“ duž te staze, nakuplja se ispod pleure i oblikuje velike bule (9). Ouley i Fraser pokazuju da u djece s nekrotičnim upalama pluća tkivna destrukcija uzrokuje strukturne defekte u malim bronhima i parenhimu. Balonsko-valvularni mehanizam nastao nakupljanjem nekrotičnog sadržaja uzrokuje porast tlaka u regijama defekta, što dovodi do širenja nekrotičnog područja i njegovog prelaska u jasno ograničenu šupljinu (21). Hemoragijska nekroza, izlivanje gnojnog sadržaja u lumen bronha i destrukcija bronhalnog zida karakteristike su stafilokokne pneumonije (1, 2, 3). Odsutnost izrazite gnojne reakcije i nekroze bronhalnog zida objasniti može rijetku pojavu pneumatocele u pneumokoknoj pneumoniji (4).

Mehanizam nastanka traumatskih pneumatocele u odnosu na one postinfekcijskog tipa je drukčiji. Traumatske pneumatocele nastaju u dva koraka. U prvom su pluća pod pritiskom vanjske sile, nakon čega slijedi brza dekompresija od povišenog negativnog intratorakalnog tlaka. Pojavljuje se tzv. „eksplozivna lezija“ plućnog parenhima, koja uzrokuje stvaranje pneumatocele (22).

Incidencija postinfekcijskih pneumatocele u pneumonijama u djece kreće se između 2 - 8 %, dosežući čak vrijednost do 85% u stafilokoknoj pneumoniji (13). Incidencija pneumatocele u brazilske djece 2001. bila je 8,3%, dok je među nigerijskom djecom bila 9,5% (12, 23). Podatke o incidenciji pneumatocele u djece u Hrvatskoj nemamo.

U posljednja dva desetljeća u pedijatriji se bilježi porast učestalosti pneumokokne pneumonije praćene komplikacijama (13). Porast učestalosti ne ovisi toliko o porastu penicilin rezistentnih serotipova *S. pneumoniae*, koliko o domaćinovim čimbenicima kao što su dob, spol, prisut-



Slika 3. Povlačenje upale u desnom centralnom plućnom režnju. Perzistentna cista u lijevom plućnom krilu bez znakova perifokalne upale.

Figure 3. The regression of the inflammation Persistent no perifocal inflammatory reaction.



Slika 4. Kontrolni radiogram: oštro ograničena cista bez znakova upale u lijevom plućnom krilu.

Figure 4. Control X-ray: well shaped cystic lesion on the left side without signs of inflammation.

nost/odsutnost bolesti, koji su ujedno čimbenici rizika (12, 13, 23). Wexler i sur. 2006. dokazuju da se pneumonije s komplikacijama češće javljaju u djece s prisutnim simptomima respiratornog distresa (tahipneja, dispneja) na dan prijma,

broja leukocita $<15 \times 10^9/L$, težinom $<10\%$ za dob i anemijom (13). Naš dječak je na dan prijma imao tahipneju i dispneju, normalnu tjelesnu masu za dob (13,1 kg, između 50-75. centilne krivulje), broj leukocita $13 \times 10^9/L$ i bio je anemičan.

Što se ostalih predispozicija tiče, nije nađena specifična rasna ni ona vezana za spol, dok predispozicija s obzirom na dob postoji (13). Pneumatocele su češće u novorođenčadi i male djece; oko 70% pneumatocela se pojavljuje u djece mlađe od 3 godine (12). Premda ne postoji ni posebna genetska predispozicija, pneumatocele su češće u djece sa sindromom hiperimunoglobulin E (Buckley-Job sindrom) i one neishranjene (12, 18). Djeca sa spomenutim sindromom su zbog imunodeficijencije sklona stafilokoknoj upali pluća čije su poznate komplikacije pneumatocele i apscesi. S druge strane, neishranjena djeca imaju pluća slična novorođenčkim. Smatra se da neishranjenost usporava razvoj Kohnovih pora, prisutnost kojih u plućima odraslih objašnjava nisku učestalost pneumatocela u toj dobnoj skupini (12, 23).

Klinički ne postoji razlika između pneumonije s pneumatocelama ili bez njih.

Od simptoma može biti prisutan umjereni, srednji i teški respiratorni distres s tahipnejom, dispnejom, retrakcijama, škripanjem u prsima i širenjem nosnih krila. Tjelesna temperatura je u pravilu povišena, krećući se između 40-41°C (12).

Fizikalni nalaz na plućima ovisi o razvojnem stadiju pneumonije. U početku se čuje kraći šum disanja te inspiratorni šumovi. Kako se pneumonija povlači i stvara pneumatocela, auskultacijski nalaz postaje normalan ili se čuje kraći šum disanja, fokalno, što ovisi o veličini pneumatocele (4). Prosječno vrijeme razvoja pneumatocele u većine djece je između 4-7 dana. No katkad se pneumatocele uoče i na prvom rendgenogramu pluća. Tako Kunyoshi i sur. opisuju da se u 80 % brazilске djece pneumatocele vide već na prvom rendgenogramu (12).

Nalazi plućne funkcije najčešće su abnormalni; u početku zbog restriktivnih, a poslije zbog opstruktivnih poremećaja ventilacije. S vremenom se ove abnormalnosti poboljšavaju i vraćaju u normalne vrijednosti. Ne preporuča se provoditi testiranje plućne funkcije tijekom akutne faze bolesti. Povećan tlak tijekom spirometrije može povećati rizik od rupture pneumatocele (22).

Premda smrtnost od inicijalne upale pluća može biti značajna, smrtnost od pneumatocela je niska. Jer, kompletna rezolucija je tipičan ishod; rijetko nastaju komplikacije kao što su: sekundarna infekcija pneumatocele, tenzijska pneu-

matocela i pneumotoraks. Većina pneumatocela spontano nestane tijekom 4-6 tjedna. Katkad u zdrave djece pneumatocele perzistiraju duže od godinu dana (12, 23). U našeg pacijenta desna pneumatocela je potpuno nestala nakon tri mjeseca, dok se lijeva postupno povlači. Prema tome, intermitentno praćenje radiograma pluća je prikladno sve do kompletne rezolucije pneumatocele. Neki autori preporučuju CT prsnoga koša, kako bi se s pouzdanošću potvrdila kompletna rezolucija i diferencijacija pneumatocele od plućnog apscesa (22). U našeg dječaka pneumatocele su slijedile prirodni tijek postupnog povlačenja bez komplikacija, što je praćeno ponavljanim radiogramom. Stoga nije bilo nužno CT snimanje prsnoga koša. Ipak, ne postoji prepoznatljiv klinički ni radiografski znak kojim bi se mogla predvidjeti progresija pneumatocele.

Medicinsko liječenje pneumatocele je u pravilu liječenje osnovne bolesti; što podrazumijeva primjenu širokog spektra antibiotika koji se rabe u liječenju pneumonije (13). Terapija bi trebala biti usmjerena protiv najčešćih uzročnika bakterijskih infekcija djece – *S. aureus* i *S. pneumoniae*.

Pneumatocele najčešće ne zahtijevaju kirurško liječenje, resekciju. U rijetkim okolnostima kao što su: pneumatocela koja zauzima 50% hemitoraksa s teškom atelektazom, tenzijska pneumatocela, bronhopleuralna fistula ili sekundarna infekcija pneumatocele, nužna je perkutana drenaža kateterom (24). Premještaj u jedinicu intenzivnog liječenja treba razmotriti u slučaju kardiovaskularne ugroženosti, značajne opstrukcije zračnih putova te razvoja pneumotoraksa. Preventivna terapija ne postoji. U posljednje vrijeme učestalost pneumatocela raste u djece s mehaničkom ventilacijom pluća. (11). Štoviše, ventilacija pozitivnim tlakom (PPV-om) može rezultirati iznenadnim porastom veličine i razvojem tenzijske pneumatocele. Zbog toga pacijente s PPV-om i dijagnosticiranim pneumatocelama nužno je precizno medicinski pratiti i promatrati.

Komplikacije pneumatocele uključuju tenzijsku pneumatocelu koja se može razviti ako se zrak kontinuirano zarobljava i pneumatocela povećava. Česta je kod osoba na programu ventilacije pozitivnim tlakom. U teškim okolnostima lezija može pritiskati okolno tkivo i uzrokovati hemodinamsku nestabilnost i opstrukciju dišnih putova. Ako se ovo stanje na vrijeme ne

prepozna ili ne liječi, rezultat je respiratorna insuficijencija i smrt (11, 23).

Pneumotoraks nastaje kad pneumatocela rupturira u pleuralni prostor. To dovodi do kolapsa pluća i zahtijeva evakuaciju zraka iz pleuralnog prostora. Bronhopleuralna fistula može nastati kao komplikacija pneumotoraksa (24).

Pneumatocela može biti sekundarno inficirana, obično različitim bakterijom od one koja je uzrokovala primarnu upalu pluća. Neki autori izbjegavaju perkutanu drenažu inficirane pneumatocele, osobito ako je ispunjena tekućinom ili gnojem, kako bi na taj način spriječili razvoj teškog plućnog apscesa, koji zahtijeva kiruršku eksciziju. Drenaža može biti dijagnostička i terapijska. Ako se drenira, tekućinu se mora poslati na kulturu (24).

Nekomplikirana pneumatocela ima izvrsnu prognozu. Kompletna rezolucija pneumatocele je najčešći ishod.

Rijetke komplikacije (tenzijska pneumatocela) mogu dovesti do smrti od respiratornog ili kardiovaskularnog kolapsa. Na sreću, to je rijetka pojava i ako se na vrijeme otkrije, može se adekvatno izliječiti.

LITERATURA

1. Dines DE. Diagnostic significance of pneumatocele of the lungs. JAMA 1969;204:1169-72.
2. Highman JH. staphylococcal pneumonia and emphysema in childhood. AJR 1969;106:103-8.
3. Ceruti E, Contreras J, Neira M. Staphylococcal pneumonia in childhood. Amer J Dis Child 1971; 122:386-92.
4. Amitar I, Mogle P, Godfrey S, Aviad I. Pneumatocele in infants and children. Clin Pediatr 1983;22: 420-2.
5. Chitayat D, Diamant S, Lazevnick R et al. Hemophilus influenzae type B pneumonia with pneumatocele formation. Clin Pediatr (Phila) 1980;19: 151-2.
6. Kuhn JP, Lee SB. Pneumatoceles associated with Escherichia coli, pneumonias in the newborn. Pediatrics 1973;51:1008-11.
7. Asmar BI, Thirumoorathi MC, Dajani AS. Pneumococcal pneumonia with pneumatocele formation. Am J Dis Child 1978;132:1091-3.
8. Papageorgious A, Bauer CT, Fletcher BD, et al. Klebsiella pneumonia with pneumatocele formation in a newborn. Can Med Assoc J 1973;109:1217-19.
9. Boisset GF. Subpleural emphysema complicating staphylococcal and other pneumonias. J Pediatr 1972;81:259-66.
10. McGarry T, Giosa R, Rohman M, Huang CT. Pneumatocele formation in adult pneumonia. Chest 1987;4:717-20.
11. Shen HN, Lu FL, Wu HD et al. Management of tension pneumatoceles with high-frequency oscillatory ventilation. Chest 2002; 121:284-6.
12. Kunyoshi V, Cataneo DC, Cataneo AJ. Complicated pneumonias with empyema and/or pneumatocele in children. Pediatr Surg Int 2006; 22:186-90.
13. Wexler ID, Knoll S, Picard E, Villa Y, Shoseyov D, Englund D and Kerem E. Clinical characteristics and outcome of complicated pneumococcal pneu-

monia in pediatric population. Pediatric Pulmonology 2006; 41:726-34.
14. Donnelly LF, Klosterman LA. Cavitary necrosis complicating pneumonia in children: sequential findings on chest radiography. AJR Am J Roentgenol 1998;171:253-6.
15. Benjamin B, Childe AE. Localized bullous emphysema associated with pneumonia in children. J Pediatr 1939; 15:621-39.
16. Ravitch MM, Fein R. The changing picture of pneumonia and empyema in infants and children. JAMA 1961; 175:1039-44.

17. Victoria MS, Steiner P, Rao M. Persistent post-pneumonic pneumatoceles in children. Chest 1981; 79:359-61.
18. Shamberger RC, Whol ME, Perez-Atayde A, Hendren WH. Pneumatocele complicating Job syndrome. Ann Thorac Surg 1992; 54:1206-8.
19. Caffey D. Regional obstructive pulmonary emphysema in infants and children. Am J Dis Child 1940; 60:586-605.
20. Conway DJ. The origin of lung cysts in childhood. Arch Dis Child 1951; 26:504-29.

21. Ougley MJ, Fraser RS. Pulmonary pneumatocele: pathology and pathogenesis. AJR Am J Roentgenol 1988; 150:1275-7.
22. Galea MH, Williams N, Mayell MJ. Traumatic pneumatocele. J Pediatr Surg 1992; 27:1523-4.
23. Oviawe O, Ogundipe O. Pneumatoceles associated with pneumonia: incidence and clinical course in Nigerian children. Trop Geogr Med 1985; 37:264-9.
24. Zuhdi MK, Spear RM, Worthen HM, Peterson BM. Percutaneous catheter drainage of pneumatocele, and lung abscess in children. Crit Care Med 1996;24:330-3.

Summary

BILATERAL POSTPNEUMOCOCCAL PNEUMATOCELES IN A ONE YEAR 7 MONTH OLD BOY: CASE REPORT AND REVIEW OF LITERATURE

M. Bazina, M. Raos, A. Bazina, Đ. Milković, B. Nogalo, M. Turkalj

We report on a one year and 7 months old boy who presented clinically with ascending pneumococcal pneumonia. He was successfully treated with beta-lactam antibiotics. On the control chest radiogram two bilateral pneumatoceles were seen during the resolution of pneumococcal pneumonia. The bilateral cystic lesions seen on the control chest X-ray prompted us to present our case as interesting, as well as to review the literature on this issue. However, there is no previous report of bilateral pneumatocele as an isolated complication, without any signs of empyema and/or effusion in pneumococcal pneumonia in children.

Descriptors: PNEUMONIA, PNEUMOCOCCAL – radiography, complications; CYSTS – etiology, radiography; LUNG DISEASES - etiology, radiography

Primljeno/Received: 9. 12. 2008.

Prihvaćeno/Accepted: 21. 01. 2009.