



Kasna prezentacija desnostrane Bochdalekove Hernije – prikaz slučaja i pregled literature

Late Presentation of Right-sided Bochdalek Hernia - Case Report and Literature Review

Nikola Vacić¹, Ana Kostić¹, Ivona Đorđević^{1,2}, Andrijana Jovanović¹, Radomir Stanković¹

¹Univerzitetski Klinički centar Niš, Klinika za dečju hirurgiju, ortopediju i traumatologiju, Niš, Srbija

²Univerzitet u Nišu, Medicinski fakultet, Niš, Srbija

ORCID iDs: Nikola Vacić
Ana Kostić
Ivona Đorđević
Andrijana Jovanović
Radomir Stanković

 <https://orcid.org/0000-0002-6826-1747>
 N/A
 <https://orcid.org/0000-0001-5879-9626>
 <https://orcid.org/0009-0009-0974-4894>
 N/A

Apstrakt

Kongenitalna dijafragmalna hernija predstavlja urođenu anomaliju dijafragme koju karakteriše postojanje defekta na dijafragmi kroz koji dolazi do protruzije abdominalnih organa u grudnu duplju. Najčešće se dijagnostikuje u neonatalnom periodu, ali su opisani i slučajevi kod kojih se dijagnoza postavlja kasnije tokom detinjstva. Prikazujemo slučaj muškog deteta, uzrasta 14 meseci, upućenog iz regionalnog zdravstvenog centra u našu ustanovu zbog izražene višednevne uznemirenosti, gastrointestinalnih tegoba i radiografskog nalaza grudnog koša i abdomena, koji je pobudio sumnju na kongenitalnu dijafragmalnu herniju. Od gastrointestinalnih tegoba dominiralo je povraćanje, uz uredan ritam pražnjenja stolice bez primesa krvi. Po prijemu je urađena radiografija i multislajsna kompjuterizovana tomografija (MSCT) grudnog koša i abdomena, kojom je potvrđena hernijacija abdominalnog sadržaja u desni hemitoraks, što je išlo u prilog dijagnozi desnostrane Bochdalek-ove hernije. Desnom supkostalnom laparotomijom eksplorisana je abdominalna duplja. Uočene su vijuge tankog creva koje prolabiraju kroz posterolateralni defekt desne hemidijafragme u desni hemitoraks. Nakon pažljive redukcije tankih creva u abdominalnu duplju i mobilizacije jetre medijalno i kranijalno, omogućena je jasna vizualizacija defekta, koji je potom rekonstruisan pojedinačnim šavovima. Postoperativni tok protekao je bez komplikacija, te je pacijent sedmog postoperativnog dana otpušten kući. Iako lečenje kasno prezentovane kongenitalne dijafragmalne hernije najčešće ima dobar ishod, ovo stanje se ne sme smatrati bezazlenim. Kasno prezentovanu kongenitalnu dijafragmalnu herniju treba uvek imati u vidu u diferencijalnoj dijagnozi kod pacijenata sa respiratornim i/ili gastrointestinalnim simptomima koji ne reaguju na standardnu terapiju, naročito kada se na nativnoj radiografiji grudnog koša uoče nepravilnosti.

Ključne reči: kongenitalna dijafragmalna hernija, Bochdalek hernija, kasna prezentacija

Abstract

Congenital diaphragmatic hernia is a congenital anomaly characterized by a defect in the diaphragm, allowing abdominal organs to herniate into the thoracic cavity. It is most commonly diagnosed during the neonatal period; however, cases diagnosed beyond this period have also been described. We present the case of a 14-month-old male child referred from a regional healthcare center to our institution due to marked irritability during the day, gastrointestinal symptoms, and abnormal findings on the plain chest and abdomen radiographies, which raised suspicion of congenital diaphragmatic hernia. The main gastrointestinal symptom was vomiting, with a normal stool pattern and no presence of blood. Upon admission, multislice computed tomography (MSCT) of the chest and abdomen confirmed herniation of abdominal contents into the right hemithorax, consistent with a right-sided Bochdalek hernia. Exploration of the abdominal cavity was performed through a right subcostal laparotomy. Loops of the small intestine were observed herniating through a posterolateral defect of the right hemidiaphragm into the right thoracic cavity. Careful reduction of the small intestine into the abdominal cavity was followed by medial and cranial mobilization of the liver, which allowed for clear visualisation of the diaphragmatic defect. The defect was repaired using interrupted sutures. The postoperative course was uneventful, and the patient was discharged home on the seventh postoperative day. Although late-presenting congenital diaphragmatic hernia generally has a favourable prognosis, it should not be regarded as a benign condition. This entity should always be considered in the differential diagnosis of patients with respiratory and/or gastrointestinal symptoms unresponsive to standard therapy, especially when abnormalities are noted on plain chest radiography.

Key words: congenital diaphragmatic hernia, Bochdalek hernia, late presentation



Primljeno / Received 15. 10. 2025
Korigovano / Revised 18. 11. 2025
Prihvaćeno / Accepted 01. 12. 2025

Autor za korespondenciju / Corresponding author: **Nikola Vacić**
Clinic for Pediatric Surgery, Orthopedics and Traumatology
University Clinical Center Niš, 48 Blv. Dr. Zorana Djindjica 18000 Niš, Serbia
E-mail: vacic1410@gmail.com

Uvod

Kongenitalna dijafragmalna hernija (KDH) predstavlja urođenu anomaliju koju karakteriše postojanje defekta dijafragme i protruzija organa abdominalne u grudnu duplju (1). Obično se dijagnostikuje u neonatalnom periodu, sa simptomima respiratornog distresa, plućne hipoplazije i plućne hipertenzije, međutim ni prenatalna dijagnoza nije retkost (2). Dok dijagnostika u neonatalnom periodu obično ne predstavlja problem, lečenje je izuzetno zahtevno i povezano sa značajnom stopom mortaliteta pre operacije (3).

Međutim, opisane su forme KDH čija se dijagnoza postavlja nakon neonatalnog perioda, tj. posle 30. dana života. Učestalost kasno prezentovane KDH varira u literaturi, od 2,6% do 45,5% (4, 5). Ova forma može dugo ostati asimptomatska, te se ponekad slučajno otkriva na nativnoj radiografiji grudnog koša ili abdomena urađenoj po drugim indikacijama, najčešće zbog sumnje na pneumoniju (6). Kada je manifestna, kasno prezentovana KDH može se ispoljiti kroz akutne ili hronične respiratorne i/ili gastrointestinalne simptome (5, 6).

Iako kasno prezentovana KDH generalno ima povoljniji ishod od neonatalne, postavljanje dijagnoze predstavlja značajan klinički izazov (7).

Prikaz slučaja

Prikazujemo slučaj muškog deteta u 14. mesecu života, upućenog iz regionalnog zdravstvenog centra u našu ustanovu zbog izražene uznemirenosti tokom dana, gastrointestinalnih tegoba i sumnje na postojanje kongenitalne dijafragmalne hernije na osnovu radiografskog nalaza grudnog koša i abdomena (slika 1). Od gastrointestinalnih tegoba isticano je povraćanje, uz uredan ritam pražnjenja stolica bez primesa krvi. Tokom trajanja tegoba dete nije imalo povišenu telesnu temperaturu.

Po prijemu u našu ustanovu urađena je MSCT dijagnostika grudnog koša i abdomena (slika 2), kojom je potvrđena hernijacija abdominalnog sadržaja — masnog tkiva i crevnih vijuga u desni hemitoraks, uz kranijalnu dislokaciju i kompresiju desnog plućnog krila. Uočen je diskontinuitet desne hemidijafragme u posteriornom segmentu, što je upućivalo na postojanje desnostrane Bochdalek-ove hernije.

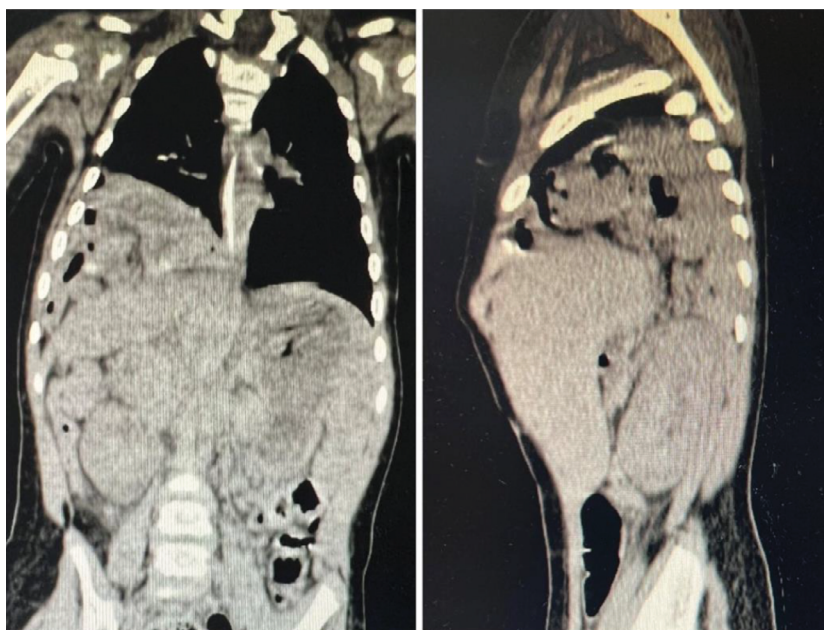
Na osnovu kliničkog i radiološkog nalaza postavljena je indikacija za hitnu hiruršku intervenciju.

Hirurški pristup ostvaren je desnom supkostalnom laparotomijom. Nakon otvaranja abdomena uočena je voluminozna, i stazna jetra. Peri-

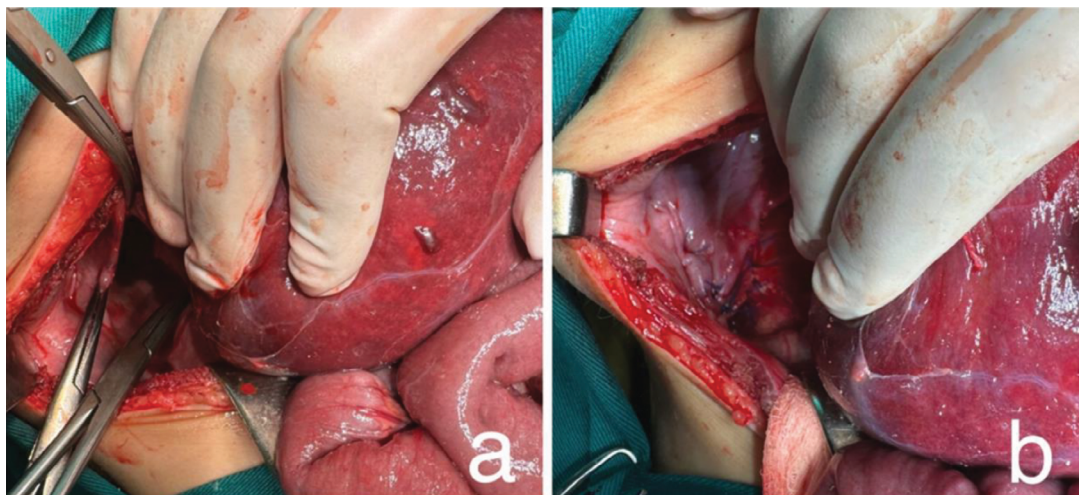


Slika 1. Nativna grafija abdomena i grudnog koša – anteroposteriorna projekcija

tonealna duplja bila je ispunjena želucom, duodenumom i kolonom, dok su sve vijuge tankog creva prolabirale kroz posterolateralni defekt desne hemidijafragme u desni hemitoraks. Pažljivo je izvršena redukcija tankih creva u abdominalnu duplju, potom mobilizacija jetre medijalno i kranijalno, čime je omogućen jasan prikaz defekta desne hemidijafragme (slika 3). Defekt je rekonstruisan pojedinačnim šavovima. Sprovođenjem underwater air testa potvrđen je uredan postrekonstruktivni nalaz. Postoperativni tok protekao je bez komplikacija, te je pacijent sedmog postoperativnog dana otpušten kući.



Slika 2. MSCT abdomena i grudnog koša – frontalni i sagitalni presek



Slika 3. Intraoperativni prikaz: a) defekta desne hemidijafragme i b) desne hemidijafragme nakon rekonstrukcije defekta suturem

Vredno je napomenuti da je pacijent u uzrastu od četiri meseca prethodno hospitalizovan u našoj ustanovi zbog grčevitih bolova u trbuhu i učestalog povraćanja mlečnog sadržaja sa primesama sluzi. Na prijemu je urađen ultrazvučni pregled abdomena kojim je evidentiran izrazito dilatiran želudac, što je potvrđeno i nativnom radiografijom abdomena. Na osnovu ovih nalaza odlučeno je sprovođenje daljeg dijagnostičkog postupka. Gastroduodenalna pasaža pokazala je jako dilatiran želudac, neobičan položaj D1 i D2 porcije duodenuma, sa koničnim sužavanjem koje se završava na prelazu D2 u D3 porciju. Ovakav nalaz, iako nije potpuno tipičan, pobudio je sumnju na postojanje intestinalne malrotacije. U skladu sa kliničkom slikom i dobijenim radiološkim nalazima, postavljena je indikacija za operativno lečenje. Tokom eksplorativne laparotomije su potvrđeni znaci malrotacije i abnormalne fiksacije creva, uz visoku poziciju cekuma iz kojeg su polazile kongenitalne Laddove veze koje su prekrivale drugu porciju duodenuma. Laddove veze su oslobođene oštrom disekcijom, a u istom aktu urađena je i apendektomija. Postoperativni tok i nakon te intervencije protekao je bez komplikacija.

Diskusija

Kasno prezentovana KDH nije toliko retka pojava u kliničkoj praksi, kako se to ranije pretpostavljalo. Prema podacima iz različitih kliničkih studija, prijavljena učestalost varira od 2,6% do 45,5% (4, 5). Međutim velika je stopa smrtnosti, naročito ukoliko je porođaj završen u manjim centrima i regionalnim bolnicama, jer deca sa KDH i teškom hipoplazijom pluća ne dožive transport do tercijarne zdravstvene ustanove (5). Suprotno tome, povećana stopa preživljavanja u ekonomski razvijenim zemljama najverovatnije je rezultat veće dostupnosti savremenih dijagnostičkih procedura, dijagnostikovane anomalije na

rutinskim ultrazvučnim pregledima trudnice, sprovođenju fetalne NMR dijagnostike, prenatalnih konzilijuma i češćeg radiološkog ispitivanja asimptomatskih pacijenata (8).

I dalje postoji određeni stepen kontroverzi u pogledu etiopatogeneze kasno prezentovane kongenitalne dijafragmalne hernije. U slučaju da je poreklo defekta kongenitalno, postavlja se pitanje koji mehanizmi doprinose prolongiranju asimptomatskog perioda i koji faktori mogu delovati kao okidač za kasniju manifestaciju bolesti. Nasuprot tome, ukoliko bi se pretpostavilo stečeno poreklo, ostaje nejasno zbog čega takvi slučajevi pokazuju karakteristike vrlo slične onima viđenim kod urođene, kao i koji bi etiološki mehanizmi mogli biti odgovorni za nastanak takvog defekta.

Još 1977. godine Wiseman i MacPherson izneli su pretpostavku da kasno prezentovana KDH zapravo predstavlja stečeni oblik defekta, te su predložili novu klasifikaciju KDH u kojoj bi ova forma bila izdvojena kao poseban tip (9).

Nekoliko godina kasnije, Newman i saradnici, na osnovu sopstvenog kliničkog iskustva, izneli su suprotno mišljenje, smatrajući da je kasno prezentovana KDH ipak kongenitalnog porekla, ali da se radi o defektima manjeg prečnika koji su u ranom periodu života bili prekriveni jetrom ili slezinom, u zavisnosti od strane zahvaćene hemidijafragme (10). Njihovu hipotezu dodatno potvrđuju i opisani slučajevi postojanja dijafragmalnih defekata prekrivenih intaktnim peritoneumom, bez znakova inflamatornih promena, što dodatno ide u prilog kongenitalnoj genezi ovog entiteta (4).

Stečeni dijafragmalni defekti najčešće su posledica ozbiljnih torakoabdominalnih trauma, koje su, međutim, znatno ređe u dečjem uzrastu u poređenju sa odraslom populacijom (11).

U studiji koju su sproveli Mei-Zahav i saradnici, od ukupno 199 pacijenata sa Bochdalek-ovom dijafragmalnom hernijom, kod 22 (11%) zabeležena je

klinička prezentacija nakon neonatalnog perioda (11). Autori navode da akutna klinička slika, praćena naglom pojavom simptoma, uz prethodno uredan radiografski nalaz grudnog koša, može ukazivati na stečeno poreklo defekta. Ipak, intraoperativni nalazi u njihovoj seriji slučajeva nisu potvrdili postojanje traumatske geneze, čime je ova hipoteza ostala bez čvrste verifikacije (11).

S druge strane, Kitano i saradnici su u svojoj retrospektivnoj multicentričnoj studiji analizirali 79 slučajeva kasno manifestovane KDH iz 30 različitih zdravstvenih ustanova. Njihovi rezultati pokazali su da ne postoje značajne razlike između neonatalne i kasno prezentovane KDH u pogledu pola i starosti pacijenata, strane zahvaćene hemidijafragme, telesne mase na rođenju, kao ni gestacione starosti. Ove sličnosti snažno idu u prilog tezi da je i kasno manifestovana KDH, zapravo kongenitalnog porekla (4).

Za razliku od neonatalne KDH, kasno prezentovanu formu ne karakteriše visoka učestalost udruženosti sa drugim kongenitalnim anomalijama. Ipak, u literaturi se ističe povećana zastupljenost abnormalne intestinalne rotacije, koja je zabeležena u približno 30% slučajeva (12).

Slično prikazanom slučaju, Ibi K. i saradnici su opisali pacijentkinju uzrasta 11 meseci sa levostranom Bochdalekovom kilom, kod koje je tokom operativnog zahvata u istom aktu ustanovljena i intestinalna malrotacija srednjeg creva, te je sprovedena Laddova procedura (7). Ono što naš slučaj čini naročito specifičnim jeste činjenica da je kod našeg pacijenta intestinalna malrotacija bila dijagnostikovana i hirurški korigovana deset meseci pre kliničke manifestacije dijafragmalne hernije. Može se pretpostaviti da je prethodna defiksacija i postizanje veće mobilnosti crevnih vijuga tokom inicijalne operacije omogućila njihovu kasniju protruziju kroz dijafragmalni defekt.

Distribucija kasno prezentovane kongenitalne dijafragmalne hernije prema strani zahvaćenosti ne razlikuje se značajno u odnosu na neonatalnu formu. Prema podacima iz literature, levostrana lokalizacija je dominantna i registrovana je u približno 79,4% slučajeva, dok se desnostrana javlja u oko 20,6% slučajeva (12). Upravo iz tog razloga prikazani slučaj, koji se odnosi na desnostranu dijafragmalnu herniju, može se smatrati neuobičajenim i klinički retkim nalazom.

Kasno prezentovana KDH često se otkriva slučajno, prilikom radiografskog snimanja grudnog koša urađenog po drugim indikacijama, najčešće zbog sumnje na pneumoniju (6). Klinička prezentacija može varirati u širokom spektru, obuhvatajući akutne ili hronične respiratorne simptome (kašalj, tahipneja, rekurentne infekcije donjih respiratornih puteva) i/ili gastrointestinalne simptome (bol u trbuhu, povraćanje) (4–7, 11, 13). U pojedinim slučajevima opisani su i gubitak telesne mase usled hronične, delimične

intestinalne opstrukcije (7). Klinička slika sa akutnim simptomima češće se javlja kod levostrane lokalizacije defekta (oko 60%), dok se kod desnostrane KDH dominantno sreću hronični simptomi (oko 57%) (12).

Takođe, zapaženo je da se mlađi pacijenti češće prezentuju respiratornim simptomima, dok su kod starije dece u kliničkoj slici češće izražene gastrointestinalne tegobe (11).

U studiji Kitano i saradnika gotovo sve desnostrane kasno prezentovane KDH manifestovale su se respiratornim simptomima (4), dok su slične rezultate prikazali i Beglaj i saradnici, kod kojih je oko dve trećine pacijenata imalo dominantno respiratorne tegobe (12). Pretpostavlja se da jetra, koja na desnoj strani može biti parcijalno hernirana u torakalnu duplju, delimično sprečava protruziju creva i želuca, što bi moglo objasniti prevalenciju respiratornih, u odnosu na gastrointestinalne simptome, kod desnostrano lokalizovanih defekata (12). Za razliku od navedenih nalaza, u našem slučaju zabeležena je desnostrana KDH čija se klinička prezentacija manifestovala isključivo gastrointestinalnim simptomom – povraćanjem, bez prisustva respiratornih tegoba, što ovaj slučaj čini atipičnim u poređenju sa podacima iz literature.

Tenzioni pneumotoraks predstavlja jednu od najčešćih diferencijalno-dijagnostičkih dilema kod kasno prezentovane KDH. Neretko se, pod sumnjom na postojanje tenzionog pneumotoraksa, plasira torakalni dren, čime može doći do jatrogene perforacije herniranih organa, uključujući želudac, kolon ili vijuge tankog creva (8, 11, 14).

Zbog toga je kod nejasnih radioloških nalaza neophodno razmotriti primenu dopunskih dijagnostičkih metoda, kao što su ultrazvuk grudnog koša ili multislajсна kompjuterizovana tomografija (MSCT), koje omogućavaju precizniju vizualizaciju anatomskih odnosa i potvrdu dijagnoze (14).

Nakon postavljanja dijagnoze, hitna hirurška intervencija predstavlja terapijski imperativ. Operativno lečenje treba započeti bez odlaganja, za razliku od urođene KDH dijagnostikovane u neonatalnom periodu, kod koje je fiziološka stabilizacija pacijenta prioritet pre hirurške korekcije (15). Defekt dijafragme moguće je operativno zbrinuti transabdominalnim ili transtorakalnim pristupom, dok savremena minimalno invazivna hirurgija podrazumeva i primenu laparoskopskih i torakoskopskih tehnika (16). Izbor hirurškog pristupa zavisi od opšteg stanja pacijenta, lateralizacije defekta i vrste herniranih organa. Yuan M. i saradnici sprovedli su retrospektivnu analizu 22 pacijenta sa levostranom dijafragmalnom hernijom u kojoj je želudac bio jedan od herniranih organa. Svi pacijenti su inicijalno tretirani torakoskopskim pristupom, uz prethodnu dekompresiju želuca nazogastričnom sondom. Kod pet pacijenata došlo je do konverzije u torakotomiju zbog neuspešne dekompresije želuca (16).

U slučajevima hernijacije drugih abdominalnih organa, preporučuje se primena laparoskopskog ili laparotomijskog pristupa, koji omogućava bolju preglednost, detaljniju evaluaciju herniranog sadržaja i tehnički pristupačniju korekciju defekta dijafragme (14).

Zaključak

Iako lečenje kasno prezentovane kongenitalne dijafragmalne kile (KDH) obično ima dobar ishod, ovo

stanje ne treba smatrati bezazlenim. Nepostojanje patognomoničnih simptoma, širok spektar kliničkih manifestacija i brojni diferencijalni dijagnostički entiteti mogu odložiti početak adekvatnog lečenja. Stoga, kasno prezentovana KDH treba se uvek uzeti u obzir u diferencijalnoj dijagnozi kod pacijenata sa respiratornim i/ili gastrointestinalnim simptomima koji ne reaguju na standardnu terapiju, posebno kada se na nativnoj radiografiji grudnog koša uoče nepravilnosti. Poznavanje i prepoznavanje ovog entiteta van neonatalnog perioda ključno je za rutinsku kliničku praksu i pravovremeno hirurško lečenje.

Literatura

- Otaño JC, Murua V, Rugilo J, et al. Congenital diaphragmatic hernia: relationship between defect size and outcome. Experience in a reference centre. *An Pediatr (Engl Ed)* 2024;101(1):29-35.
- Knox E, Lissauer D, Khan K, Kilby M. Prenatal detection of pulmonary hypoplasia in fetuses with congenital diaphragmatic hernia: a systematic review and meta-analysis of diagnostic studies. *J Matern Fetal Neonatal Med* 2010;23(7):579-88.
- Ibdah MG, Issa M, Berawi SN, et al. Diagnostic challenges in late-presentation congenital diaphragmatic hernia: A case study of a 10-month-old with respiratory symptoms. *Radiol Case Rep* 2024;19(11):5044-9.
- Kitano Y, Lally KP, Lally PA; Congenital Diaphragmatic Hernia Study Group. Late-presenting congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg* 2005 Dec;40(12):1839-43.
- Elhalaby EA, Abo Sikeena MH. Delayed presentation of congenital diaphragmatic hernia. *Pediatr Surg Int* 2002;18(5-6):480-5.
- Mwamanenge NA, Mussa F, Nyamuryekung'e MK, Mkony M, Abdallah Y, Manji K. Late diagnosis of congenital diaphragmatic hernia: a case report. *J Med Case Rep* 2023;17(1):240.
- Ibi K, Ogata S, Kondo K, Namai Y. Late-presenting congenital diaphragmatic hernia associated with poor weight gain. *Pediatr Int* 2022;64(1):e14730.
- Hamid R, Baba AA, Shera AH, Wani SA, Altat T, Kant MH. Late-presenting congenital diaphragmatic hernia. *Afr J Paediatr Surg* 2014;11(2):119-23.
- Wiseman NE, MacPherson RI. "Acquired" congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg* 1977;12(5):657-65.
- Newman BM, Afshani E, Karp MP, Jewett TC Jr, Cooney DR. Presentation of congenital diaphragmatic hernia past the neonatal period. *Arch Surg* 1986;121(7):813-6.
- Mei-Zahav M, Solomon M, Trachsel D, Langer JC. Bochdalek diaphragmatic hernia: not only a neonatal disease. *Arch Dis Child* 2003;88(6):532-5.
- Baglaj M. Late-presenting congenital diaphragmatic hernia in children: a clinical spectrum. *Pediatr Surg Int* 2004;20(9):658-69.
- Masuya R, Nakame K, Munakata S, Takeno S, Nanashima A, Ieiri S. A case of late-presenting congenital diaphragmatic hernia diagnosed at 5 years with acute abdomen. *Surg Case Rep* 2024;10(1):177.
- Gebremichael A, Tesfaye W. Clinical challenges and management of late presenting congenital diaphragmatic hernia mimicking tension pneumothorax in a child: a case report and review of literatures. *Int J Emerg Med* 2024;17(1):134.
- Chao PH, Chuang JH, Lee SY, Huang HC. Late-presenting congenital diaphragmatic hernia in childhood. *Acta Paediatr* 2011;100(3):425-8.
- Yuan M, Li F, Xu C, et al. Emergency Management of Acute Late-Presenting Congenital Diaphragmatic Hernia in Infants and Children. *Pediatr Emerg Care* 2021;37(7):357-9.