

Laporan Kasus: Tracheo-Oesophageal Fistula pada Pasien HIV

Yustin, W, E, F, Y¹, Candrawati, N, W¹, Sajinadiyasa, I, G, K¹, Rai, I, B, N¹

¹ Departemen Ilmu Pulmonologi dan Respirasi
Fakultas Kedokteran Universitas Udayana, Denpasar, Indonesia
E-mail : evie.youth@gmail.com

Abstrak

Pendahuluan: Fistula tracheoesophageal (TEF) merupakan kasus yang jarang terjadi, tetapi banyak penyebab termasuk immunosupresi akibat infeksi HIV. *Human immunodeficiency virus* (HIV) dapat menyebabkan peningkatan insidennya. Pemahaman mengenai kondisi HIV ini memungkinkan kita untuk dapat menegakkan diagnosis yang cepat dan akurat, sehingga dapat memberikan pengobatan yang tepat. **Laporan kasus:** Laki-laki berusia 30 tahun dengan HIV diantar ke RS dengan rasa sakit saat menelan, batuk terus-menerus dengan dahak kuning kecoklatan, dan tersedak saat menelan. Foto toraks menunjukkan atelektasis paru kiri dan bronkiektasis. Endoskopi menunjukkan 2 fistula pada dinding anterior 20 cm dari gigi seri. Bronkoskopi mengkonfirmasi fistula pada trakea posterior pada cincin ke-4 dengan semburan nanah. Jaringan ikat fibrosa dengan sel inflamasi kronis ditemukan pada biopsi trakea. ART, penutupan fistula, dan gastrostomi dilakukan, ditutup 1 tahun kemudian. Setelah itu dilakukan torakotomi pro pneumektomi. Nyeri saat menelan, batuk terus-menerus, dan dahak berwarna kuning kecoklatan merupakan manifestasi dari TEF. Diagnosis dipastikan melalui bronkoskopi yang menunjukkan fistula pada trakea posterior setinggi ring 4 disertai pecahnya sputum. Penatalaksanaan TEF meliputi terapi konservatif atau persiapan pra operasi (TPN, ART, NGT, dan / atau PEG) serta pembedahan. Pembedahan dilakukan untuk menutup fistula dan gastronomi akibat infeksi sebagai etiologinya. **Kesimpulan:** TEF merupakan komplikasi yang jarang terjadi pada pasien HIV, prognosisnya tidak baik.

Katakunci: Disfagia, fistula, HIV, tracheoesofagus

Abstract

Introduction: Tracheoesophageal fistula (TEF), although rare, may occur due to many causes including immunosuppression due to HIV infection. HIV may cause its increase incidence. Comprehension about this condition in HIV allowing clinicians to give fast and accurate diagnosis, thus, accurate treatment. **Case report:** 30-year-old male with HIV presented with pain upon swallowing, persistent cough with brownish yellow sputum, and choking on swallowing. Thorax photo displayed left hemisphere atelectasis and bronchiectasis. Endoscopy showed 2 fistulas on anterior wall 20 cm from incisor. Bronchoscopy confirmed fistula on posterior trachea on 4th ring with pus' outbursts. Fibrous connective tissue with chronic inflammation cells was found on tracheal biopsy. ART, fistula closure, and gastrostomy was done, closed 1 year later. Afterwards thoracotomy pro pneumectomy was done. The patient came with pain upon swallowing, persistent cough, and brownish yellow sputum, which are characteristics for TEF. Diagnosis was confirmed through bronchoscopy showing fistula on posterior trachea as high as 4th ring accompanied by sputum burst. Management of TEF includes conservative therapy or pre-operation preparation (TPN, ART, NGT, and/or PEG) and surgery. Surgery was done to close fistula and gastronomy due to infection as the etiology. **Conclusion:** TEF is a rare complication in HIV patients, prognosis was not good.

Keywords: Dysphagia, fistula, HIV, tracheoesophageal

I. PENDAHULUAN

Tracheoesophageal fistula (TEF) merupakan kondisi dimana seseorang memiliki saluran abnormal yang berada di antara trakea dan esofagus. Kondisi ini dapat terjadi akibat beberapa penyebab, misalnya trauma, neoplastik, komplikasi akibat ventilasi mekanik, nekrosis karena intubasi yang berkepanjangan, pemasangan selang nasogastrik yang kaku, atau perforasi dan pembedahan endoskopi iatrogenik. Kondisi ini pada umumnya dapat ditemukan sebagai komplikasi dari karsinoma esofagus; Namun, hal ini dapat disebabkan oleh kelainan non-neoplasma lainnya, seperti infeksi, terutama tuberkulosis esofagotrakeal.¹⁻³ Walaupun relatif jarang, kejadian fistula meningkat karena prevalensi HIV / AIDS yang tinggi.^{2,3}

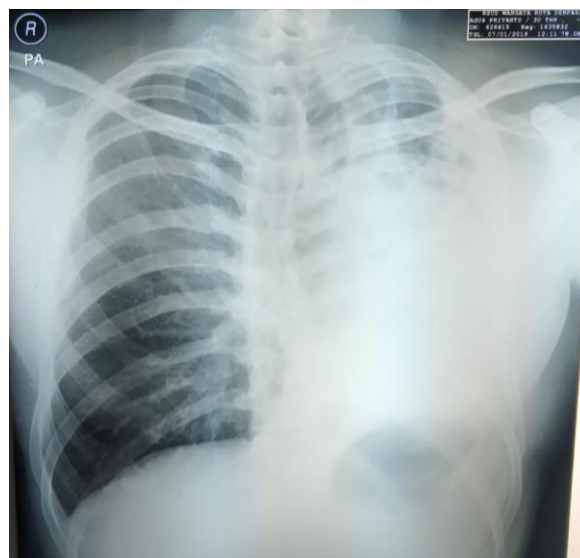
Pengenalan terapi antiretroviral (ART) telah menurunkan kejadian trakeoesofagus fistula. Fistula ini dapat terjadi akibat komplikasi tuberkulosis pada saluran cerna dan pernafasan dalam beberapa kasus yang jarang terjadi. Infeksi lain dapat menyebabkan kondisi serupa, misalnya *cytomegalovirus* (CMV), *herpes simplex virus* (HSV) tipe 2, dan HIV.⁴ Fistula trakeoesofagus dapat dipertimbangkan ketika pasien mengalami batuk terus-menerus selama menelan. Konfirmasi diagnosis didapatkan melalui endoskopi dan analisis histopatologi dalam banyak kasus. Outcome pasien dalam kasus TEF biasanya buruk jika tidak ditatalaksana dengan baik, dimana tingkat kelangsungan hidup rata-rata pasien dengan TEF adalah satu sampai enam minggu.^{2,3,5}

Pemahaman tentang fistula trakeoesofagus pada pasien HIV memungkinkan dokter untuk mendiagnosis kondisi ini dengan cepat dan akurat sehingga terapi dapat dilakukan sedini mungkin.

II. LAPORAN KASUS

Laki-laki 30 tahun dengan HIV datang dengan keluhan nyeri menelan selama 3 bulan. Dia juga mengeluh batuk terus menerus yang berkepanjangan dengan dahak berwarna kuning kecoklatan. Batuk dengan dahak bercampur darah disangkal. Penderita sering tersedak dan merasa sesak setelahnya. Pasien merupakan seorang pekerja seks dan melakukan hubungan seksual berganti pasangan.

Pasien sebelumnya mengalami penurunan berat badan sebanyak 7 kg dalam 3 bulan terakhir. Pasien kemudian diketahui mengidap HIV dalam 10 tahun terakhir dan rutin minum ART. Pemeriksaan fisik ditemukan ronchi di apeks paru kiri dan suara nafas yang berkurang di ICS II-VI kiri. Rontgen dada menunjukkan paru-paru kiri yang hancur dengan atelektasis pada paru-paru kiri dan bronkiektasis bersama dengan retraksi trakea ke sisi kiri (Gambar 1).



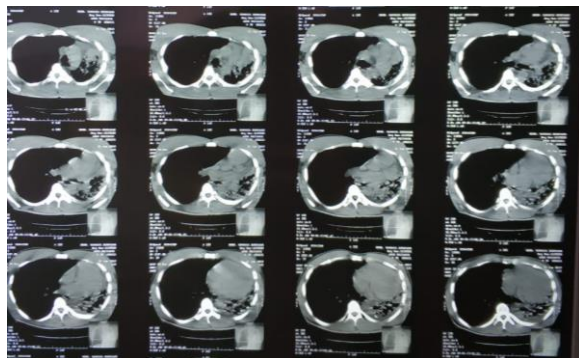
GAMBAR 1. HASIL RONTGEN DADA

Endoskopi menunjukkan 2 fistula pada dinding anterior 20cm dari gigi seri (Gambar 2). Pada *multi-slice CT-Scan* (MCT) *thorax* dengan kontras menunjukkan infiltrat fibrosis pada paru kiri disertai kolaps paru kiri. Pembuluh darah broncho paru kanan

normal. Trakea dan mediastinum tertarik ke sisi kiri (Gambar 3).



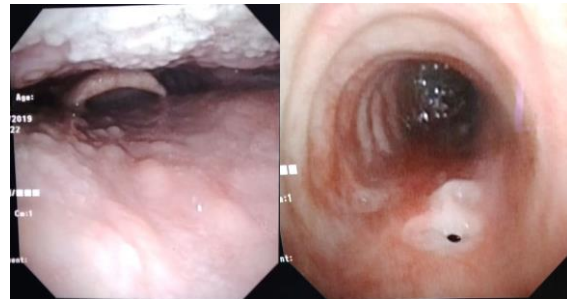
GAMBAR 2. HASIL ENDOSKOPI



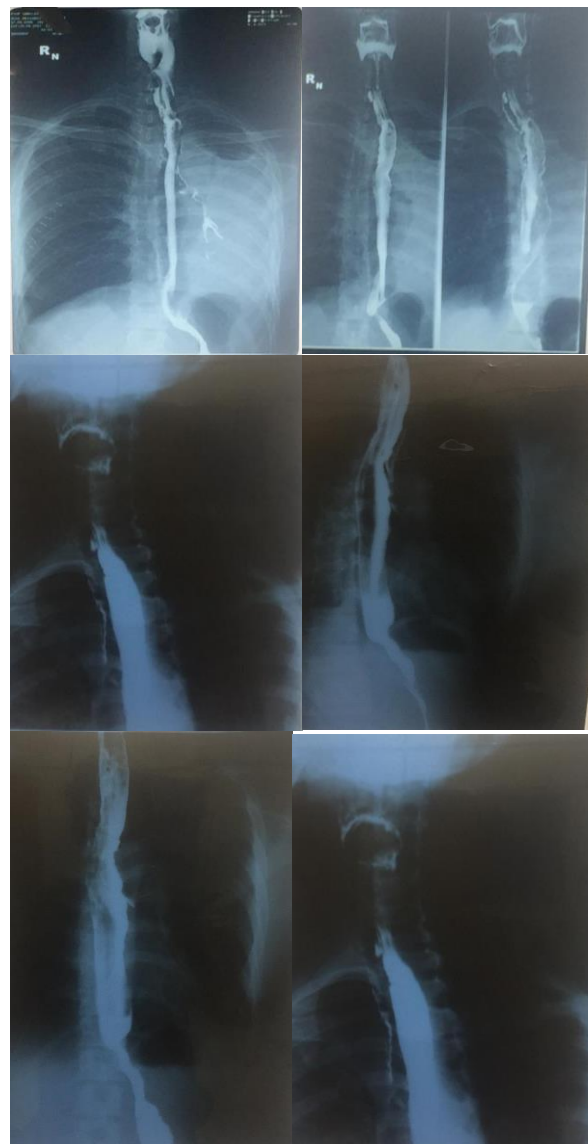
GAMBAR 3. CT-SCAN THORAX DENGAN KONTRAS

Mycobacterium tuberculosis tidak ditemukan pada pemeriksaan sputum tes cepat

molekuler (TCM). Bronkoskopi mengkonfirmasi kandidiasis oral, pita suara normal, fistula pada trakea posterior setinggi ring 4 disertai dengan semburan nanah, karina lancip (Gambar 4). Bronkoskopi tidak dapat dilanjutkan karena desaturasi.

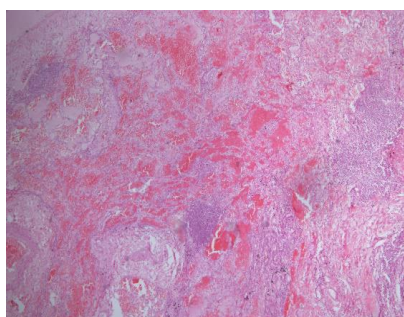
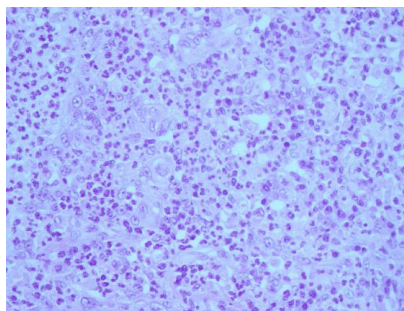


GAMBAR 4. HASIL BRONKOSKOPI



GAMBAR 5. ESOFAGOGRAFI

Biopsi trakea menunjukkan adanya jaringan ikat fibrosa dengan sel inflamasi kronis yang mungkin merupakan bagian dari fistula. Ditemukan sel inflamasi *limfoplasmacytic* dan pembuluh darah melebar. *Bronchial lavage* didapatkan distribusi sel inflamasi neutrofil, histiosit dan makrofag yang menggambarkan adanya inflamasi kronik supuratif (Gambar 6).



GAMBAR 6. HISTOPATOLOGI BIOPSI TRAKEA

Diagnosis dipastikan melalui endoskopi, bronkoskopi, dan patologi anatomi. Penatalaksanaan dengan ART, penutupan fistula dan gastrostomi dilakukan. Itu ditutup 1 tahun setelah itu. Setelah itu dilakukan *thoracotomy pro pneumectomy* pada paru-paru kiri.

III. DISKUSI

Fistula trakeoesofagus merupakan kondisi medis yang jarang terjadi. Insidennya bisa meningkat karena adanya kejadian immunosupresi, termasuk HIV/ =AIDS. Namun, kejadian penyakit saluran cerna oportunistik semakin menurun sejak kombinasi ART diperkenalkan. Beberapa penelitian telah melaporkan kasus resistansi HIV terhadap beberapa ART. Hal ini

berpotensi menyebabkan penyakit esofagus terkait HIV terutama pada pasien dengan immunosupresi berat. Beberapa organisme yang telah dilaporkan menjadi penyebab TEF, antara lain *Mycobacterium tuberculosis*, *Mycobacterium avium-intracellulare*, spesies *Candida*, spesies *Nocardia*, CMV, dan *Herpes simplex virus*.^{5,6}

Jamur juga merupakan salah satu organisme penyebab infeksi saluran pernapasan bawah pada penderita HIV seperti *Cryptococcus neoformans*, *Candida albicans*, dan *Histoplasma capsulatum*. *Candida albicans* dianggap sebagai jamur paling umum diisolasi dari cairan pernapasan pada pasien yang terinfeksi HIV. Aspirasi melalui fistula pada pasien HIV juga dapat menyebabkan pneumonia candida.⁶⁻⁸

Pasien dengan HIV positif memiliki frekuensi kandidiasis oral dan esofagus yang tinggi. Meski demikian, infeksi saluran pernafasan yang disebabkan oleh *Candida* jarang terjadi. Fistula trakeoesofagus yang disebabkan oleh infeksi saluran pernafasan pada pasien HIV mungkin memiliki penyebab ganda. Laporan kasus pasien laki-laki HIV-positif disajikan dengan dispnea parah dan batuk tidak produktif.⁷

Hal ini dapat didiagnosis dengan kandidiasis nekrotik akibat bronkoskopi fiberoptik menunjukkan massa yang menginfiltrasi dan bervegetasi pada trakea. Lesi tersebut menyebabkan fistula trakeoesofagus, dan akhirnya, kematian. Postmortem menunjukkan vaskulitis sitomegalovirus di dinding esofagus. Laporan lain juga merinci perkembangan fistula yang disebabkan oleh kandidiasis dan aspergillosis pada kerongkongan dan penyebaran ke saluran pernapasan.^{7,9}

Pembentukan TEF dikaitkan dengan beberapa mekanisme:¹⁰

- Pecahnya limfonodi subcarinal caseonefrotik ke esofagus dan trakea

- Traksi divertikulum antara percabangan saluran pernapasan dan esofagus
- Erosi ulkus trakea primer ke esofagus.

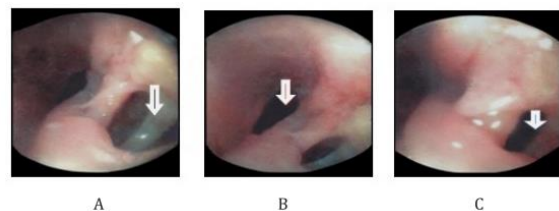
Bypass laring menyebabkan isi esofagus masuk ke trakea. Air liur, makanan, dan cairan lambung dapat mencemari saluran pernafasan yang mengakibatkan kongesti, infeksi, pneumonia, obstruksi bronkial, atelektasis, dan gangguan pernafasan. Tingkat keparahan kontaminasi tergantung pada lebar dan panjang fistula serta postur tubuh pasien.⁶ Rontgen dada dalam kasus kami menunjukkan atelektasis paru kiri dan bronkiektasis.

Fistula trakeoesofagus biasanya muncul dengan infeksi saluran pernapasan bawah berulang, dan batuk, terutama setelah konsumsi cairan, yang khas. Beberapa pasien mungkin datang dengan batuk, hemoptisis, penurunan berat badan, disfagia, dan demam. Batuk yang tidak terkontrol saat minum dan krepitasi pada posterior kanan atas ICS VI merupakan patognomonik untuk TEF.¹⁰

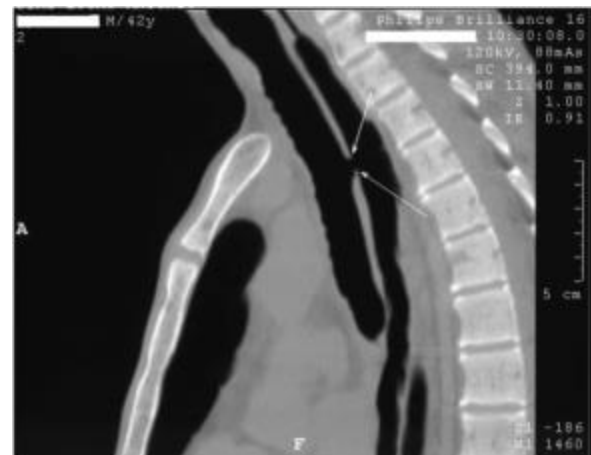
Sejalan dengan teori, pasien kami mengeluhkan adanya nyeri saat menelan disertai batuk persisten dengan sputum kuning kecoklatan. Gejalanya terjadi selama 3 bulan terakhir dengan tersedak setiap kali makan, atau minum yang diikuti batuk. Batuk kronis atau sesekali dispnea dikaitkan dengan fistula kecil, sedangkan batuk paroksismal setelah menelan cairan dan makanan padat biasanya menunjukkan fistula yang lebih besar. Fistula kronis juga dapat menyebabkan peningkatan kerentanan terhadap infeksi paru berulang, diakhiri dengan bronkiektasis.² Gejala lain yang dapat ditemukan termasuk odynophagia, nyeri retrosternal, dan disfagia. Fistula trakeoesofagus dicurigai jika muncul batuk saat menelan dan dapat dikonfirmasi dengan bronkoskopi atau endoskopi.

Endoskopi digunakan untuk biopsi dan analisis histopatologi diperlukan untuk diagnosis etiologi. Pewarnaan rutin biasanya

cukup untuk diagnosis sebagian besar infeksi oportunistik pada pasien dengan gangguan sistem kekebalan, termasuk HIV. Namun pada kasus TB, analisis histopatologi jarang menunjukkan basil tahan asam dan granuloma kaseosa. Pada ulkus idiopatik terkait HIV, mikroskop elektron digunakan untuk memastikan keberadaan virus.⁵ Jika diagnosis dini tidak membantu, biasanya karena kolaps fistula, CT oral dengan kontras dilakukan untuk memastikan diagnosis.²



GAMBAR 7. CONTOH FISTULA TRAKEOESOFAGUS. A. PANAH MENUNJUKKAN BRONKIAL PADA TEF; B. PANAH MENUNJUKKAN LUMEN ESOFAGUS; C. PANAH MENUNJUKKAN ORIFICE PADA TEF⁵



GAMBAR 8. CONTOH CT THORAX RESOLUSI TINGGI (SAGITAL) YANG MENUNJUKKAN FISTULA ANTARA ESOFAGUS DAN DINDING POSTERIOR TRAKEA⁶

Dalam kasus ini diagnosis dikonfirmasi dengan endoskopi, bronkoskopi, dan patologi anatomi. Endoskopi menampilkan 2 fistula pada dinding anterior 20 cm dari gigi seri. Pemeriksaan bronkoskopi menunjukkan trakea posterior fistula setinggi cincin 4 disertai semburan nanah. Biopsi trakea menunjukkan jaringan ikat fibrosa dengan peradangan kronis, yang mungkin merupakan bagian dari fistula.

Setelah diagnosis TEF dikonfirmasi, pengobatan dini yang tepat adalah untuk melindungi jalur udara dengan trakeostomi, dari distal ke fistula atau memberi makan pasien ke jejunum melalui gastronomi perkutan dan mencegah refluks gastroesofagus. Pembedahan dilakukan jika ventilasi dan nutrisi memadai.⁵

Manajemen konservatif persiapan pasien pra operasi mungkin termasuk *total parenteral nutrition* (TPN), pengobatan antiretroviral (ART), *nasogastric tube* (NGT), atau *percutaneous endoscopy gastrostomy* (PEG). Memberi makan NGT dapat menunda pemulihan fistula karena kontak fisik yang terus-menerus dari makanan, yang sebaliknya dapat memicu refluks gastroesofagus dan kolonisasi NGT.²

Pembedahan dapat menjadi pilihan jika fistula jinak telah terhubung ke paru-paru atau infeksi mediastinum. Lokasi fistula menentukan lokasi sayatan operasi yang diperlukan untuk reparasi. Flap interposisi menggunakan otot, pleura, dan perikardium juga diperlukan. Meskipun terdapat risiko tinggi migrasi stent esofagus, manajemen ini mungkin diperlukan untuk pasien yang tidak dapat dioperasi.¹

Meskipun terapi untuk TEF adalah pembedahan, dalam kasus-kasus akibat infeksi TB, laporan terbaru menyarankan terapi anti-TB. Saat ini, fistula trakeoesofagus dapat ditangani secara konservatif dengan terapi kausal dan dukungan nutrisi. NGT digunakan untuk memungkinkan penyembuhan fistula. Namun PEG disarankan dibandingkan NGT untuk menghindari kontak fisik kateter dan fistula, sehingga memicu perbaikan mukosa dan mencegah refluks atau kolonisasi gastroesophageal reflux.¹⁰

Pendekatan TEF kronis melibatkan torakotomi untuk menutup lesi. Namun, prosedur ini berisiko tinggi pada pasien dengan gizi buruk dan kerusakan global.

Stenting endoskopi juga telah digunakan; Namun, hasilnya buruk karena komplikasi lokal seperti memburuknya fistula.¹⁰

Pada TEF proksimal, pendekatan pembedahan dilakukan melalui insisi pada serviks anterior atau bawah. Lesi kecil diperbaiki dalam dua lapisan di atas NGT. Flap otot dari leher atau interkostal digunakan untuk mendukung penutupan dan meningkatkan keberhasilan prosedur. Fistula trakeoesofagus yang berhubungan dengan lesi lingkaran besar, seperti pada nekrosis karena insersi ETT, mungkin memerlukan reseksi trakea.⁶

TEF sekunder karena keganasan seringkali tidak dapat dioperasi. Untuk mengisolasi fistula TEF dan mencegah aspirasi paru esofagus, perlu dilakukan pemasangan stent. Pemasangan stent biasanya dilakukan melalui endoskopi dengan sedasi. Stent awal adalah tabung plastik rigid yang membutuhkan dilatasi esofagus yang agresif dengan risiko pecahnya fistula. Stent sendiri rentan terhadap migrasi, obstruksi, dan nyeri. Stent logam modern yang mengembang sendiri tidak memerlukan dilatasi dan dapat ditoleransi dengan lebih baik oleh pasien. Stent trakea juga telah dilaporkan di TEF.⁶

Dalam kasus kami, pembedahan dilakukan di mana operator menutup fistula dan melakukan gastrostomi. Pilihan ini diambil karena etiologi TEF adalah infeksi. Terapi antiretroviral dilanjutkan. Torakotomi pro pneumektomi dilakukan pada pasien. Fistula trakeoesofagus adalah komplikasi yang jarang terjadi pada HIV dengan prognosis buruk.

IV. KEKURANGAN LAPORAN KASUS

Ketidak patuhan pasien terhadap jadwal kontrol menyebabkan data yang tidak lengkap mengenai kelanjutan *follow up* dan terapi yang tidak maksimal.

V. KESIMPULAN

Fistula trakeoesofagus merupakan saluran abnormal antara trakea dan esofagus. Kondisi ini dapat terjadi karena beberapa penyebab, salah satunya adalah infeksi oportunistik pada penderita immunosupresi. Salah satu faktor risiko terjadinya TEF adalah HIV. Fistula trakeoesofagus terkait HIV dapat disebabkan oleh infeksi oportunistik pada banyak organisme, terutama *Mycobacterium tuberculosis*, *Candida albicans*, dan *Cytomegalovirus*. Terlepas dari ART yang tersedia, Fistula trakeoesofagus masih menjadi tantangan dengan prognosis yang buruk karena terapi yang terbatas. Diagnosis TEF harus dipertimbangkan pada batuk terus-menerus selama menelan pada pasien dengan infeksi HIV. Terapi utama dalam TEF adalah pembedahan. Jenis pembedahan tergantung pada ukuran lesi dan tingkat toleransi pasien..

DAFTAR PUSTAKA

- [1] Mosquera-Klinger G, Holguin-Cardona A. Endoscopic closure of tracheoesophageal fistula for tuberculosis with an over-the-scope-clip. *Rev Esp Enfermadades Dig*. 2018;110(9):594–7.
- [2] Alexander G. HIV post-tuberculous broncho-oesophageal fistulas: A surgical solution. *South African J Surg*. 2017;55(2):36–7.
- [3] Cabañero A, Dronda F, Saldaña D, et al. Management of a tracheoesophageal fistula in a patient with AIDS. *Asian Cardiovasc Thorac Ann*. 2017;25(3):226–8.
- [4] Kasper; Denis L; et al. *Harrison's Principles of Internal Medicine* 19th Edition. New York: McGraw-Hill Education; 2018.
- [5] Andoulo FA, Medjo UO, Hadja H, et al. Tracheo-oesophageal fistula in highly active antiretroviral therapy patient with AIDS. *Crit Care*. 2013;3(2):18–21.
- [6] Diddee R, Shaw IH. Acquired tracheo-oesophageal fistula in adults. *Continuing Education in Anaesthesia*. *Crit Care Pain*. 2006;6(3):105–8.
- [7] Bartolome S, Klotz S, Bartholomew W. Clinical microbiological case: esophago-airway fistula in an AIDS patient. *Clin Microbiol Infect*. 2002;8(3):189–90.
- [8] Felmly LM, DeNino WF, Denlinger C, et al. Recurrent esophagopericardial fistula in a patient with human immunodeficiency virus. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 2014;147(4):48–9.
- [9] Rusconi S, Meroni L, Galli M. Tracheoesophageal fistula in an HIV-1-positive man due to dual infection of *Candida albicans* and cytomegalovirus. *Chest*. 1994;106(1):284–5.
- [10] Baijal R, Ramegowda PKH, Jain M, et al. Clinical profile and management of tuberculous bronchoesophageal fistula. *J Dig Endosc*. 2013;4(4):103–6.