

Relato de Caso

## Dois casos de cisto broncogênico do mediastino em lactentes sintomáticos.

Two cases of mediastinal bronchogenic cyst in symptomatic infants.

Maristela Fraga Pereira Portella<sup>1</sup>, Leonardo Vejar Mourgues<sup>2</sup>, Ricardo Madrid Henao<sup>3</sup>, Nadinne Clerc Fray<sup>4</sup>, Aquiles Hachim Gutierrez<sup>5</sup>, Patricio Le Cerf Simpson<sup>6</sup>.

### RESUMO

Os cistos broncogênicos são malformações relativamente infreqüentes, que causam 10% das massas e 60% dos cistos mediastinais. No entanto, uma intervenção cirúrgica, geralmente, é necessária para a confirmação do diagnóstico, para a exclusão de malignidade e prevenção de complicações, tais como hemorragia e infecção.

Descrevemos dois casos de cisto broncogênico do mediastino, em lactentes com menos de 1 ano de vida. Os diagnósticos foram suspeitados devido à evolução com sintomas digestivos, associados à compressão esofágica, demonstrada na radiografia de tórax e na seriografia esôfago-gástrica com bário. A tomografia computadorizada de tórax reforçou a hipótese diagnóstica e ambos os pacientes foram submetidos à cirurgia, sendo o diagnóstico confirmado com a histopatologia das lesões. Os dois casos obtiveram total sucesso terapêutico, tornando-se assintomáticos após a cirurgia.

Este trabalho reforça a importância de se incluir a possibilidade do diagnóstico de cisto broncogênico mediastinal, em lactentes com sintomas digestivos de refluxo gastro-esofágico que não melhoram com o tratamento clínico adequado.

**Descritores:** cisto broncogênico; massa mediastínica/criança; malformação pulmonar.

### ABSTRACT

Mediastinal bronchogenic cysts are relatively unusual malformations that cause 10% of the masses and 60% of the mediastinal cysts. However, surgery is usually required to confirm diagnosis, exclude malignity and prevent hemorrhage and infection.

We described two infants, less than one year of age, with mediastinal bronchogenic cysts. The diagnosis was suspected because of a symptomatic evolution with digestive symptoms, associated with esophageal compression, demonstrated by chest radiograph and chest radiograph with barium. Chest computed tomography supported the diagnosis and both infants were submitted to surgery, and the diagnosis were confirmed by histopathology. The two infants achieved success with surgery, returning without symptoms after that.

This study emphasizes the importance of including the possibility of the diagnose of mediastinal bronchogenic cysts in infants with digestive symptoms that do not improve with the adjusted clinical treatment.

**Keywords:** bronchogenic cyst; mediastinal mass /child; pulmonary malformations.

1. Pediatra, Mestre em Ciências da Saúde (UNB), Unidade Broncopulmonar.

2. Pediatra, especialista em Pneumologia Pediátrica, Unidade Broncopulmonar e RED Infante Juvenil - Hospital Dr. Sotero del Rio.

3. Pediatra, especialista em Pneumologia Pediátrica, Unidade Broncopulmonar - Hospital Dr. Sotero del Rio.

4. Pediatra, especialista em Pneumologia Pediátrica, Chefe da Unidade Broncopulmonar - Hospital Dr. Sotero del Rio.

5. Cirurgião Infantil, Cirurgia Infantil - Hospital Dr. Sotero del Rio.

6. Médico Patologista, Anatomia Patológica - Hospital Dr. Sotero del Rio.

Trabalho realizado no Hospital Dr. Sotero del Rio, Santiago, Chile.

**Endereço para correspondência:** Hospital Dr. Sotero del Rio. Endereço residencial: Cerro La Parva 777 Departamento 101. Las Condes - Santiago - Chile. Tel (fax): 00XX 562 3562984. e-mail: hebermar2@uol.com.br

**Endereço para correspondência do autor no Brasil:** (Maristela Portella): Rua Olegarilha 47 bloco 1 apt 302. Grajaú. CEP 20560-200, Rio de Janeiro - RJ. Tel: 21 25767172.

Recebido em 18/04/2007 e aceito em 11/06/2007, após revisão.

## INTRODUÇÃO

O cisto broncogênico é o mais freqüente dentre as lesões císticas do mediastino. O achado radiológico de cisto mediastinal, em virtude dos contornos bem delimitados e conteúdo líquido, quase sempre dá a impressão de que se trata de uma entidade clínica de comportamento benigno. No entanto, o cisto broncogênico tem considerável potencial para se tornar sintomático e desenvolver complicações.<sup>1,2</sup>

Descrevemos dois casos em lactentes sintomáticos, acompanhados no Hospital Sotero del Rio (Santiago-Chile), que obtiveram êxito com a ressecção cirúrgica das lesões.

## RELATO DO CASO 1

Paciente feminina, 7 meses, natural de Curico (VII Região do Chile - área rural), com história de tosse freqüente, principalmente durante e após a alimentação. Manteve bom ganho ponderal. Com relação aos antecedentes, nasceu de parto normal, sem intercorrências, Apgar 9/9, peso de nascimento (PN) 3330g, estatura de nascimento (EN) 48cm, a termo (AT). Aos 3 meses, foi realizada uma telerradiografia de tórax, que mostrava imagem arredondada, causando alargamento do mediastino à direita e, aos 4 meses, realizou tomografia computadorizada (TC) de tórax, que evidenciou a imagem cística bem delimitada, de densidade homogênea, medindo 5cm o maior diâmetro, localizada em mediastino médio (figura 1), sugerindo cisto broncogênico.

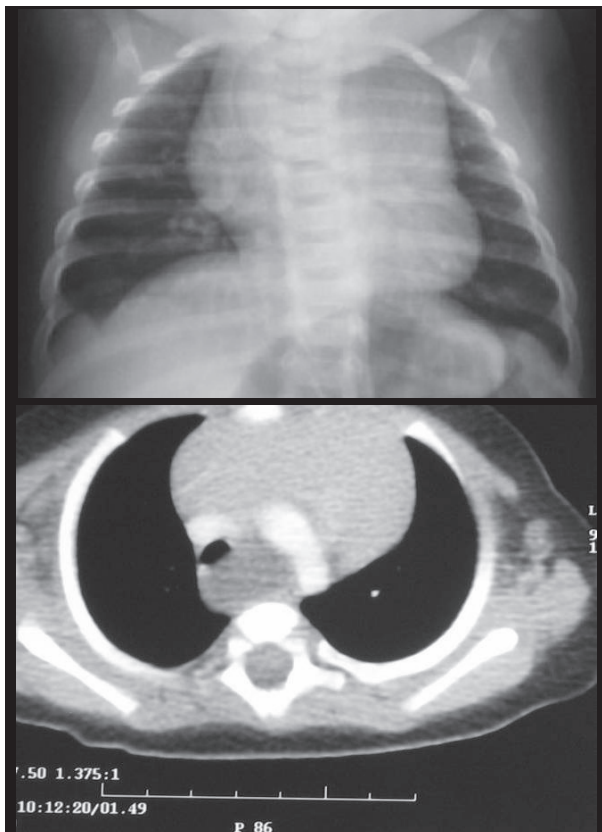


Figura 1 - Telerradiografia e TC de tórax demonstrando imagem mediastinal arredondada e bem delimitada, sugerindo processo benigno.

Aos 5 meses e 20 dias, foi realizada toracotomia pósterio-lateral direita, no quarto espaço intercostal, com a ressecção de cisto de 5cm, o maior diâmetro.

A macroscopia mostrou lesão cística, de conteúdo claro, cristalino e mucóide. A microscopia confirmou a presença de epitélio compatível com cisto broncogênico.

A paciente evoluiu bem depois da cirurgia, tornando-se assintomática. Foi acompanhada por dez meses, sem apresentar intercorrências.

## RELATO DO CASO 2

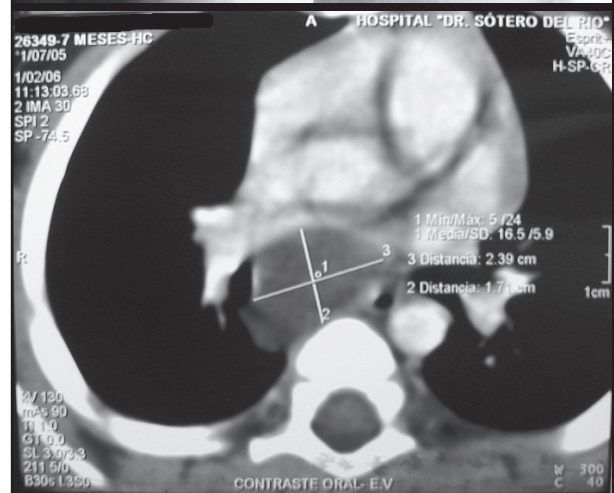
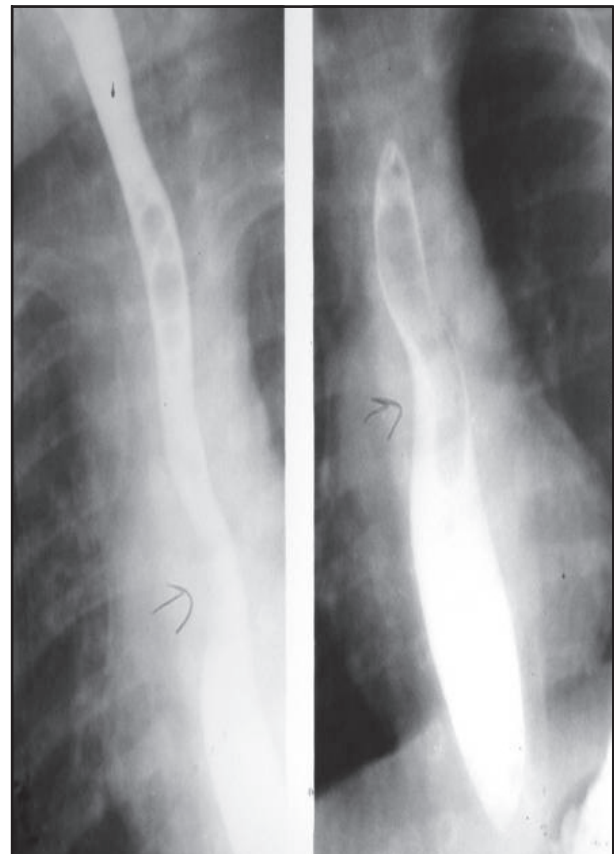


Figura 2 - Seriografia Esôfago-Gástrica com bário mostrando lesão arredondada comprimindo a porção mediana do esôfago e TC de tórax mostrando a mesma lesão, em mediastino posterior

Paciente do sexo masculino, 1 ano de idade, natural de Santiago, com história de bronquiolite aos 3 meses, época na qual realizou telerradiografia de tórax, a qual não apresentava nenhuma imagem sugestiva de massa mediastínica. Evoluiu com regurgitação persistente e voz rouca ao chorar e ao balbuciar, desde os 6 meses. Nasceu de parto normal, sem intercorrências, Apgar 9/9, PN 3880g, EN 51,5cm, AT. Foi acompanhado na Clínica de Refluxo Gastro-Esofágico (RGE), onde foi realizada Seriografia Esôfago-Gástrica com bário (figura 2), quando foi evidenciada lesão arredondada, comprimindo a porção mediana do esôfago. Em seguida, aos sete meses, foi realizada TC de tórax, a qual mostrou imagem cística bem delimitada, arredondada, de densidade homogênea, medindo cerca de 2,5cm, o maior diâmetro, sem septos e/ou calcificações em seu interior, localizada no mediastino posterior, região subcarinal.

Foi realizada toracotomia com a ressecção da lesão, com 1 ano de vida. A macroscopia mostrou lesão cística, de conteúdo claro, cristalino e mucóide. A microscopia (figura 3) confirmou a presença de epitélio compatível com cisto broncogênico. O paciente evoluiu bem, assintomático, após a cirurgia, tendo sido acompanhado por nove meses, sem intercorrências.

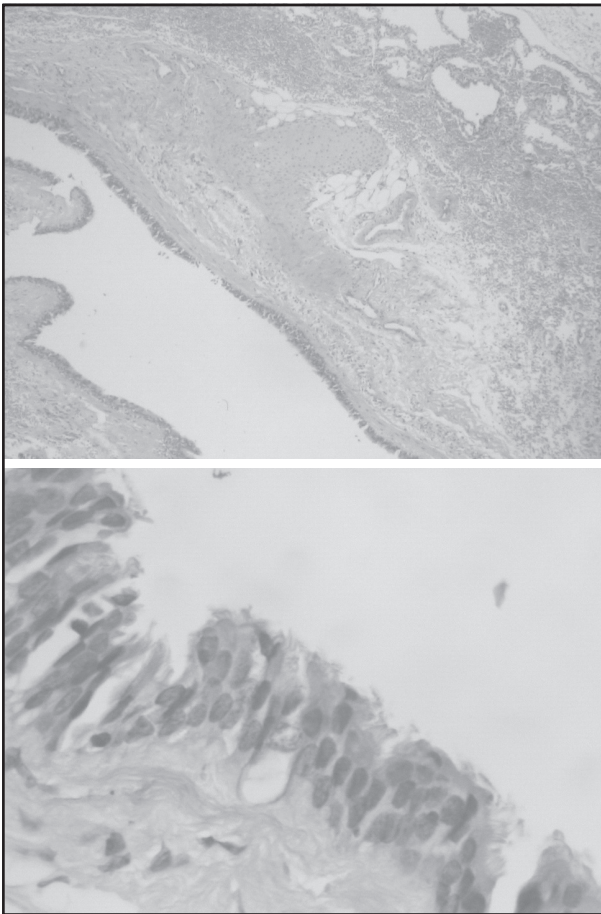


Figura 3 – Histopatologia da lesão evidenciando a presença de epitélio respiratório pseudo-estratificado colunar ciliado, contendo glândulas brônquicas, músculo liso e cartilagem.

## DISCUSSÃO

Os cistos broncogênicos do mediastino são lesões congênitas que representam entre 6% e 15% das massas mediastinais.<sup>3,4</sup> Eles representam 50 a 60% de todos os cistos do mediastino, sendo originados a partir de um brotamento anormal do intestino anterior primitivo que forma a árvore traqueobrônquica.<sup>5,6</sup> Oitenta e cinco por cento dos cistos broncogênicos surgem no mediastino e têm relação anatômica com a traquéia, brônquio principal e carina, localizando-se, na maioria das vezes, no mediastino médio ou posterior, preferencialmente nas regiões paratraqueal e carinal, sendo que 15% ocorrem no pulmão.<sup>3,4,6</sup> Existem relatos de casos de cistos broncogênicos em outras localizações, tais como cervicais, paravertebrais, entre outros.<sup>5,7</sup> Eles são também descritos em associação com outras anormalidades pulmonares congênitas, tais como o seqüestro pulmonar.<sup>5</sup> Os nossos dois casos estavam localizados no mediastino, sendo que o primeiro em mediastino médio e o segundo na região de mediastino posterior, o que está de acordo com o descrito na literatura; e nenhum dos dois estava associado a outra malformação pulmonar.

Os cistos broncogênicos imitam a estrutura da traquéia ou brônquios, sendo revestidos, internamente, por epitélio respiratório (pseudo-estratificado colunar ciliado), contendo glândulas brônquicas, músculo liso e ilhas de cartilagem, externamente, sendo incomum a comunicação com a árvore traqueobrônquica.<sup>3,4,6</sup> O conteúdo dessas estruturas é variável, podendo estar preenchidas por fluido seroso, material mucóide, pus ou sangue.<sup>5,6</sup> A macro e microscopia das lesões aqui relatadas são compatíveis com o que há descrito na literatura.<sup>3,4,6</sup>

Ocorrem, tipicamente, em adultos dos dois sexos, em qualquer grupo etário.<sup>6</sup> Raramente são diagnosticados ao nascimento. Geralmente permanecem assintomáticos por muito tempo, podendo constituir achado radiológico; porém, podem apresentar sintomas, devido à compressão e/ou irritação de estruturas adjacentes ou por infecção.<sup>3,4,6</sup> Nossos pacientes tiveram o diagnóstico estabelecido ainda na fase de lactente, devido às manifestações clínicas importantes; os dois apresentavam sintomas relacionados à compressão esofágica. Vários autores destacam a importância desses sintomas, mostrando que este é um diagnóstico diferencial, que deve ser lembrado no pacientes com refluxo gastro-esofágico que não melhoram com o tratamento clínico.<sup>9,10</sup> Alguns autores referem-se à recorrência de sintomas obstrutivos como uma forma comum de apresentação.<sup>11,12</sup> Outros autores chamam a atenção para o diagnóstico diferencial da tosse crônica em lactentes, indicando a realização de telerradiografia de tórax, broncoscopia, teste do suor e até outros exames de imagem, como a TC de tórax, a seriografia esôfago-gástrica e a ultrassonografia torácica.<sup>5,13,14</sup> Os sintomas, que se apresentam mais co-

mumente na fase adulta, são devidos à infecção: febre, dor torácica e tosse produtiva. Os lactentes e crianças, mais comumente, apresentam sintomas de obstrução severa de via aérea, mas também podem apresentar quadro de pneumonia.<sup>3,6</sup> Outras complicações que podem ocorrer são ruptura do cisto infectado para o interior de um brônquio, pericárdio ou pleura, hemorragia e degeneração maligna.<sup>1,3,6</sup>

Radiologicamente, os cistos broncogênicos aparecem como massas mediastinais com paredes bem delimitadas, de forma esférica, homogênea, ou podendo conter nível hidro-aéreo, de tamanho que varia de dois a dez centímetros.<sup>1,4</sup> No nosso primeiro caso, houve a grande suspeita diagnóstica inicial de massa mediastinal, através da imagem arredondada que apareceu na telerradiografia de tórax, realizada aos três meses vida, sendo, posteriormente, reforçada pela TC de tórax. Com este exame, é possível precisar-se a localização anatômica da lesão, que geralmente aparece como massa cística bem delimitada, de densidade homogênea, variando de acordo com o seu conteúdo, podendo apresentar calcificações na sua parede.<sup>1,2,6</sup> Já o nosso segundo paciente apresentou um quadro sugestivo de bronquiolite aos três meses, época em que

realizou telerradiografia de tórax, o qual não evidenciou nenhuma imagem sugestiva de massa mediastinal. Como o paciente seguiu com sintomatologia de RGE, foi realizada seriografia, a qual mostrou lesão arredondada que comprimia a porção mediana do esôfago. Nesta época, então, foi suspeitada a presença de um cisto broncogênico e realizada a TC de tórax, que apoiou o diagnóstico.

O tratamento cirúrgico está indicado, primariamente, para todos os cistos broncogênicos sintomáticos.<sup>3,15</sup> No entanto, a cirurgia pode ser uma opção mesmo nos casos assintomáticos, uma vez que cerca de 85% destas lesões podem tornar-se sintomáticas ao longo do tempo.<sup>3,6</sup> Em nossos dois pacientes foi realizada toracotomia com ressecção completa da lesão cística, obtendo, ambos, total sucesso terapêutico. A abordagem cirúrgica preconizada na literatura médica envolve a ressecção completa do cisto por toracotomia ou por videotoracoscopia.<sup>1,3,8</sup>

## AGRADECIMENTOS

Ao Professor Doutor Clemax Couto Sant'Anna, pela valiosa e inestimável orientação e incentivo na elaboração deste trabalho.

## REFERÊNCIAS

1. Suen HC, Mathisen DJ, Grillo HC, LeBlanc J, McCloud TC, Moncure AC, et al. Surgical management and radiological characteristics of bronchogenic cysts. *Ann Thorac Surg.* 1993; 55 (2): 476-81.
2. Lima NF, Dias GM, Carvalho AA. Cisto broncogênico complicado por mediastinite e empiema contra-lateral. *J Bras Pneumol.* 2004; 30 (1): 56-9.
3. Brandão DS, Boasquevisque CHR, Haddad R, Ponzio ES. Tratamento cirúrgico de cisto broncogênico paratraqueal por mediastinoscopia cervical. *J Bras Pneumol.* 2005; 31 (4): 364-5.
4. Franco A, Mody NS, Meza MP. Imaging Evaluation of Pediatric Mediastinal Masses. *Radiologic Clinics of North America.* 2005; 43 (2): 325-53.
5. Taussig, Lynn M. *Pediatric Respiratory Medicine.* 1st ed. St Louis, Missouri, USA: Mosby, Inc., 1999. p.1118-9.
6. Junior MAMC, Castro MAM, Wietzycoski CR, Mespague CB. Cisto broncogênico. *Rev AMRIGS* 2005; 49 (4): 257-9.
7. Mehta RP, Faquin WC, Cunningham MJ. Cervical bronchogenic cysts: a consideration in the differential diagnosis of pediatric cervical cystic masses. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2004; 68 (5): 563-8.
8. Duranceau ACH, Deslauriers J. Foregut cysts of the mediastinum in adults. In: Shields TW, editor. *General thoracic surgery.* 5th ed. Philadelphia, USA: Lippincott Williams, 2000; 2401-9.
9. Nobuhara KK, Gorski YC, La Quaglia MP, Shamberger RC. Bronchogenic cysts and esophageal duplications: common origins and treatment. *J Pediatr Surg.* 1997; 32 (10): 1408-13.
10. Lai P, Nguyen LHP, Kim PCW, Campisi P. No unusual case of biophasic stridor in na infant: Suprasternal bronchogenic cyst. *Journal of Pediatrics,* 2006; 149 (3): 424.
11. Montesi J, Duarte MC, Sá MCC, Ferrari MTM. Cisto broncogênico simulando asma brônquica em criança. *Pulmão RJ.* 2003; 12 (3): 186-8.
12. Mampilly T, Kurian R, Shenai A. Bronchogenic cyst – cause of refractory wheezing in infancy. *Indian J Pediatr.* 2005; 72 (4): 363-4.
13. Chang AB, Glomb WB. Diagnosis and management of cough: ACCP Evidence-Based Clinical Practice Guidelines. *Chest.* 2006; 129 (1): 260S-83S.
14. Marchant JM, Masters IB, Taylor SM, Cox NC, Seymour GJ, Chang AB. Evaluation and outcome of young children with chronic cough. *Chest,* 2006; 129 (5): 1132-41.
15. Parikh D, Samuel M. Congenital cystic lung lesions: is surgical resection essential? *Pediatr Pulmonol.* 2005; 40(6): 533-7.