

ACESSO CERVICAL PARA EXÊRESE DE CISTO BRONCOGÊNICO EM MEDIASTINO ANTERIOR EM CRIANÇA

CERVICAL ACCESS TO REMOVE BRONCHOGENIC CYST IN THE ANTERIOR MEDIASTINUM IN A PEDIATRIC PATIENT

Leticia Alves Antunes^{1,2}; Carolina Talini¹; Bruna Cecília Neves de Carvalho¹; Weliton Durães²; Renato Neves Noronha^{1,2}; Otávio Jana Rodrigues, ACBC-MG¹.

RESUMO

Os cistos bronco-gênicos são formados a partir do desenvolvimento anormal do intestino anterior, caracterizados por conter tecidos normalmente encontrados na traqueia e brônquios. São alterações raras com baixa prevalência e que podem produzir efeitos compressivos sobre a via aérea, dependendo de sua localização e tamanho. Este relato trata de um paciente de dois anos e seis meses de idade com estridor respiratório desde os seis meses de vida, que recebeu tardiamente o diagnóstico de cisto bronco-gênico em mediastino anterior. A lesão era extensa (4,8 x 4,5 x 4,5cm), comprimindo e desviando a traqueia, porém sua ressecção completa foi possível apenas por meio da cervicotomia, não sendo necessário acesso torácico. A anatomia patológica confirmou o diagnóstico. Apesar de ser uma anomalia rara, na presença de sintomas respiratórios em pacientes lactentes, o diagnóstico de cisto bronco-gênico deve sempre ser aventado, possibilitando o tratamento cirúrgico precoce e evitando a morbidade associada a esta patologia.

Descritores: Cisto Mediastínico. Doenças do Mediastino. Cirurgia. Criança.

ABSTRACT

Bronchogenic cysts are formed due to an abnormal development of the foregut and contain tracheal and bronchial tissues. Those are rare malformations presenting low prevalence and can produce airway compression due to its location and volume. This case demonstrates a 2,6 years old patient presenting wheezing since six months old, that was late diagnosed as bronchogenic cyst in the anterior mediastinum. The lesion was extensive (4,8 x 4,5 x 4,5cm), depressing and deviating the trachea, yet it was possible to entirely remove it through cervicotomy without thoracic access. The pathological anatomy confirmed the diagnosis. Despite its rarity when facing respiratory symptoms in infants the hypothesis of bronchogenic cyst must be evaluated, making it possible to provide adequate surgical treatment, avoiding the morbidity associated to that pathology.

Keywords: Mediastinal Cyst. Mediastinal Diseases. Surgery. Child.

INTRODUÇÃO

Os cistos bronco-gênicos são remanescentes do intestino primitivo, que se formam entre a 26 e 40 semanas de gestação e que representam o desenvolvimento anormal do intestino anterior contendo tecido que é normalmente encontrado na traqueia e brônquios¹.

Ainda que sua localização mais comum seja no mediastino (85% dos casos), o cisto bronco-gênico é uma alteração rara, com prevalência de 1:42.000 até 1:68.000 nascidos vivos. Constitui de 13-15% das doenças císticas pulmonares congênicas, sendo mais comumente localizadas no mediastino, e correspondendo a cerca de 6% das massas mediastinais em crianças².

Foram classificados por Maier em 1946 de acordo com sua localização anatômica: hilar, paraesofágico, carinal, traqueal ou misto³.

Em sua maioria são assintomáticos, mas quando presentes os sintomas, em geral estão associados ao efeito de massa produzido pelo cisto, podendo produzir compressão da carina, levando a sintomas respiratórios com certa frequência, como tosse, dispneia, disfagia e estridor¹. O efeito de massa sobre a traqueia e o esôfago é mais comum quando o cisto se localiza em posição subcarinal ou paratraqueal a direita⁴.

Este artigo tem como objetivo relatar um caso raro de cisto bronco-gênico gigante

¹ Irmandade Nossa Senhora das Mercês, Serviço de Cirurgia Pediátrica, Montes Claros, MG, Brasil.

² Universidade Estadual de Montes Claros, Faculdade de Medicina, Montes Claros, MG, Brasil.

no mediastino anterior, apresentando diagnóstico tardio e como sintoma estridor persistente.

RELATO DO CASO

Criança, sexo masculino, dois anos e seis meses, encaminhada para internação pela pneumologia devido radiografia de tórax com alargamento de mediastino (Figura 1).



Figura 1. Radiografia de Tórax. Alargamento do mediastino

Histórico de três episódios de pneumonia com necessidade de internação hospitalar e broncoespasmo frequente. Dispneia aos esforços com estridor desde os seis meses de idade, porém sem investigação prévia. Realizado tomografia computadorizada de tórax com presença de massa cística localizada na transição cervicotorácica esquerda, iniciando no lobo esquerdo da tireoide, medialmente a carótida e jugular e estendendo-se para o mediastino superior até acima do arco aórtico, crescendo entre o tronco braquiocéfálico e a artéria carótida comum esquerda, medindo 4,8 x 4,5 x 4,5cm. A lesão apresenta contato com a traqueia, condicionando compressão e deslocamento para a direita (Figura 2 e 3). Paciente submetido à cervicotomia direita com possibilidade de ressecção total da lesão cística, com boa visualização da traqueia, esôfago e subclávia direita, estruturas contíguas à lesão (Figura 4 e 5). Paciente permaneceu 48 horas em Unidade Terapia Intensiva, recebendo alta no sétimo dia

de pós-operatório para acompanhamento ambulatorial. Resultado anatomopatológico sugestivo de cisto broncogênico (lesão cística revestida por epitélio colunar pseudo-estratificado mucossecrator com áreas de metaplasia escamosa. Músculo liso, tecido cartilaginoso maduro e algumas glândulas mucosas são vistas na parede).



Figura 2. Tomografia computadorizada de tórax. Lesão cística medindo 4,8 x 4,5 x 4,5cm. A lesão apresenta contato com a traqueia, condicionando compressão e deslocamento para a direita.



Figura 3. Relação do cisto com os vasos da base e traqueia em corte coronal de tomografia.

DISCUSSÃO

Os cistos broncogênicos mediastinais tendem a ocorrer com maior frequência no lado direito e são mais frequentes no sexo masculino. Corroborando com a literatura, o paciente em questão era do sexo masculino com lesão em mediastino anterior a direita, desviando a traqueia e os vasos subclávios. Em geral são uniloculares, re-

pletos de líquido fluido, com epitélio colunar ciliado podendo incluir cartilagem, musculatura e tecido glandular¹.



Figura 4. Intraoperatório. Cervicotomia para exérese de cisto broncogênico em mediastino anterior.



Figura 5. Peça cirúrgica. Exérese de cisto broncogênico em mediastino anterior.

A topografia dos cistos parece ser mais importante do que o volume no que diz respeito aos sintomas compressivos: 57% nos paratraqueais, 68% na carina ou a nível do hilo e 18% abaixo do hilo⁵.

Em sua maioria, são assintomáticos, porém os sintomas em geral estão relacionados a compressão da via respiratória pela cisto¹. Acima dos cinco anos de idade a presença de sintomas respiratórios diminui,

sendo mais frequentes os casos assintomáticos e a presença de dor, relacionada à possível irritação da pleura⁵. O paciente aqui relatado apresentava sintomas desde os 6 meses de vida, com estridor respiratório importante, porém não recebeu o diagnóstico logo no início dos sintomas.

O diagnóstico é feito com base nos achados clínicos e radiológicos, porém a análise histológica é determinante⁶. O diagnóstico diferencial na presença de estridor em lactentes também deve incluir como hipóteses: lesões da via aérea superior e inferior, lesões inflamatórias ou neoplásicas, alterações das cordas vocais, corpo estranho ou lesão vascular³.

O exame complementar inicial deve ser a radiografia de tórax, que pode inclusive apresentar resultado normal, porém o exame padrão ouro é a tomografia computadorizada⁷ que pode localizar o cisto e definir sua relação com as estruturas adjacentes bem como caracterizar a densidade de seu conteúdo⁸, auxiliando no planejamento cirúrgico. Com o advento dos exames de alta resolução, o diagnóstico pré-natal já é possível em alguns casos⁹. O caso descrito aqui demonstra um paciente que recebeu tratamento para asma por sintoma de estridor respiratório recorrente, apresentando internamentos de repetição por pneumonia. Suspeitou-se de outra patologia que não asma quando um raio-X de tórax evidenciou alargamento do mediastino. Por esta razão, foi indicada tomografia que evidenciou a presença do cisto.

A presença de complicações é mais frequentemente reportada em crianças do que nos pacientes jovens e adultos, e incluem: infecção do cisto e formação de abscesso, transformação maligna, fistulização, compressão traqueal, síndrome da veia cava superior, hemoptise e até ruptura espontânea para o interior da árvore respiratória⁴. Apesar do claro sintoma compressivo apresentado pelo paciente, felizmente não houve complicações antes do tratamento cirúrgico, algo notável tendo em vista que o diagnóstico e tratamento só foram estabelecidos dois anos após o início do estridor. A presença de complicações em virtude da compressão da via aérea poderia inclusive ter levado ao óbito do paciente em decorrência da demora do diagnóstico.

Com o objetivo de evitar comprometimento respiratório recorrente e a morbidade associada à suas complicações, o tra-

tamento de escolha é a completa excisão cirúrgica do cisto, que pode ser realizada por via aberta ou toracoscópica. A toracoscopia vem apresentando melhorias técnicas importantes nos últimos anos, possibilitando inclusive procedimentos minimamente invasivos em pacientes pequenos e tumores de localização menos favorável¹⁰. A aspiração inicial do cisto é recomendada por facilitar a dissecação e reduzir imediatamente a compressão local, podendo ser realizada em situações de emergência. Todavia, a aspiração não exclui a necessidade de ressecção do cisto, sendo que recidivas já foram relatadas até 25 anos depois da aspiração do cisto⁴. O tratamento do paciente em questão foi possível apenas com acesso via cervical, sem necessidade de acesso torácico combinado.

Apesar de ser um diagnóstico raro, a possibilidade de cisto broncogênico deve ser aventada nos casos de estridor em lactentes. Apesar do tradicional acesso torácico para exérese da lesão, em determinados casos o acesso cervical único possibilita a remoção completa do cisto, dependendo de sua localização. O correto diagnóstico possibilita o tratamento precoce com a excisão do cisto minimizando a morbidade associada a esta patologia.

REFERÊNCIAS

1. Goswamy J, de Kruijf S, Humphrey G, Rothera MP, Bruce IA. Bronchogenic cysts as a cause of infantile stridor: case report and literature review. *J Laryngol Otol*. 2011;125(10):1094-7.
2. Abushahin A, Zarroug A, Wagdi M, Jannah I. Bronchogenic cyst as an unusual cause of a persistent cough and wheeze in children: a case report and literature review. *Case Rep Pediatr*. 2018;2018:9590829.
3. Zedan M, Elgamal MA, Zalata K, Nasef N, Fouda K. Progressive stridor: could it be a congenital cystic lung disease? *Acta Paediatr*. 2009;98(9):1533-6.
4. Hsu CG, Heller M, Johnston GS, Felberbaum M. An unusual cause of airway compromise in the emergency department: mediastinal bronchogenic cyst. *J Emerg Med*. 2017;52(3):e91-e93.
5. Ribet ME, Copin MC, Gosselin B. Bronchogenic cysts of the mediastinum. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1995;109(5):1003-10.
6. Kiralj A, Vučković N, Mijatov I. Congenital cervical bronchogenic cyst: a case report. *Srp Arh Celok Lek*. 2015;143(5-6):317-21.
7. Liu L, Pan T, Wei X. Bilateral giant pulmonary bronchogenic cysts. *Asian Cardiovasc Thorac Ann*. 2009;17(1):64-6.
8. Ozkan A, Okur M, Kaya M, Kucuk A. A case of bronchogenic cyst mimicking foreign body aspiration. *Pediatr Emerg Care*. 2013;29(7):833-5.
9. Nolasco-de-la Rosa AL, Nuñez-Trenado LA, Román-Guzmán ER, Chávez-Villicaña CE. Quiste broncogénico en cuello. Reporte de un caso y revisión de la bibliografía. *Cir Cir*. 2016;84(3):235-9.
10. Li XH, Zang T, Wang S, He BC, Yang XN, Zhong WZ, Chen JM. Minimally invasive, multi-disciplinary approach for surgical management of a mediastinal congenital bronchogenic cyst in a 6-month-old infant. *J Thorac Dis*. 2017;9(9):E743-E47.

Recebido em: 29/07/2018

Aceito para publicação: 20/08/2018

Conflito de interesses: Não

Fonte de financiamento: Não

Endereço para correspondência:

Letícia Alves Antunes

E-mail: lilith_alves@yahoo.com.br

lilithalves2016@gmail.com