

Presentación de caso

Quiste broncogénico. Presentación de un caso

Bronchogenic cyst. Presentation of a case

Dra. Juana del Pilar Rodríguez Concepción¹, Dr. Manuel Felipe Valdés Rodríguez¹, Dr. Rafael Leiva Rodríguez¹, Dra. Amelia González Martín¹, Dr. Osblady Limas Cruz¹, Est. José Daniel Lorenzo González².

1. Hospital General Provincial Camilo Cienfuegos. Sancti Spíritus. Cuba.
2. Universidad de Ciencias Médicas. Sancti Spíritus. Cuba.

RESUMEN

Fundamentación: Los quistes broncogénicos constituyen el 10 % de las masas mediastinales en niños. Se presentan en la infancia en forma de distrés respiratorio. En niños mayores y adultos la forma de presentación es como sepsis respiratoria recurrente y con frecuencia cursan de forma asintomática, los que son diagnosticados a través de un hallazgo en una radiografía de tórax.

Objetivo: Describir un caso clínico de quiste broncogénico, infrecuente en la edad adulta

Presentación: Paciente de 55 años con antecedentes de enfermedad pulmonar obstructiva crónica, hipertensión arterial y diabetes mellitus tipo II, remitida del área de salud al Hospital General "Camilo Cienfuegos" de Sancti Spiritus por cuadros de sepsis respiratoria recurrentes, asociados a disnea, tos húmeda y dolor torácico. En los estudios radiológicos se constató radiopacidad en parénquima pulmonar derecho, imagen sugestiva de quiste broncogénico. Se indicó tratamiento médico, se difirió el proceder quirúrgico por clasificarse como paciente de alto riesgo por sus antecedentes patológicos. Lo novedoso del caso es lo infrecuente del diagnóstico en pacientes adultos. **Conclusiones:** Los quistes broncogénicos son infrecuentes diagnosticarlos en edad adulta, pueden permanecer asintomáticos o complicarse en cualquier momento de su evolución con neumonías recurrentes o sepsis respiratorias más graves. Siempre se puede definir el diagnóstico en estos casos después de descartar la presencia de una neoplasia de pulmón, no siempre es posible la resección quirúrgica.

DeCS: QUISTE BRONCOGÉNICO; MEDIASTINO; NEUMONÍA/epidemiología.

Palabras clave: Quiste broncogénico, tumor mediastino, enfermedad bronquial, neumonía/epidemiología.

ABSTRACT

Background: The bronchogenic cysts constitute 10% of the mediastinum masses in children. They are presented in the childhood in form of breathing distress. In bigger children and adults the presentation form is as a recurrent breathing sepsis and frequently happen in an asymptomatic way, which are diagnosed through the discovery in a thorax x-ray. **Objective:** To describe a clinical case of bronchogenic cyst, uncommon in mature ages. **Presentation:** A 55 years old patient with antecedents of chronicle obstructive lung illness, arterial hypertension and diabetes mellitus type II, remitted by the area of health to the General Hospital "Camilo Cienfuegos" of Sancti Spiritus for recurrent clinical manifestations of breathing sepsis, associated to dyspnea, humid cough and thoracic pain. In the radiological studies radiopacity was verified in right lung parenchyma, suggestive image of bronchogenic cysts. Medical treatment was indicated, it was differed for surgical proceeding to be classified as patient of high risk by its pathological antecedents. The novelty of the case is the uncommon of the diagnosis in mature patients. **Conclusions:** The bronchogenic cysts are uncommon to diagnose them in mature ages, they can remain asymptomatic or to get complicated in any moment of their evolution with recurrent pneumonias or more serious breathing sepsis. It can always be defined the diagnosis in these cases after discarding the presence of a lung neoplasia, it is not always possible the surgical resection.

MeSH: BRONCHOGENIC CYST; MEDIASTINUM; PNEUMONIA/epidemiology.

Keywords: Bronchogenic cyst, mediastinum tumor, bronchial illness, pneumonia/epidemiology.

INTRODUCCIÓN

Las malformaciones pulmonares congénitas tienen una incidencia de un 2,2 %, y son mucho menos frecuentes que las enfermedades pulmonares adquiridas. Existe un grupo de estas malformaciones que se han denominado malformaciones broncopulmonares del intestino anterior que comprenden los quistes broncogénicos (QB) pulmonares; los quistes broncogénicos (QB) se producen como consecuencia de una gemación anormal del árbol bronquial embrionario, constituyen el 10 % de las masas mediastinales en niños, su localización suele ser el mediastino o en parénquima pulmonar. Los quistes pueden estar rellenos de aire, moco o de fluido seroso. En general suelen ser únicos, de forma esférica, con un tamaño que oscila entre los 2 y 10 cm de diámetro y con una mayor incidencia en el lado derecho. Los QB mediastínicos son los más comunes, su localización típica incluye la región carinal, paratraqueal, hiliar o paraesofágica. La mayoría están localizados entre la tráquea y el esófago, y estos se producen en la fase temprana del desarrollo intraútero^{1,2}.

Los QB mediastínicos producen sintomatología debido a que causan obstrucción de las vías aéreas, por el contrario los QB pulmonares representan una lesión ocupante de espacio que puede llegar a infectarse³.

Su presentación en la infancia suele ser en forma de distrés respiratorio, ocasionalmente con un rápido deterioro. En el niño mayor o en adulto, la infección pulmonar recurrente debido a obstrucción bronquial parcial, es la presentación clínica usual. Las infecciones pueden ocurrir en el propio quiste, incluso sin una comunicación bronquial evidente. En el adulto los quistes broncogénicos suelen ser asintomáticos y se evidencian en radiografía de tórax de rutina. Ocasionalmente se manifiestan por cuadros de hemoptisis^{4,5}.

Dentro de los estudios complementarios utilizados para el diagnóstico, se encuentra la radiografía de tórax que a menudo es impreciso, otro de los estudios necesarios para confirmar el diagnóstico es el la tomografía axial computarizada (TAC) de pulmón, lo que aumenta la precisión diagnóstica en un 70 %, lo que permite confirmar la naturaleza de la lesión, además ayuda a establecer la extensión y distribución de la enfermedad, y el efecto de masa sobre el mediastino y el pulmón no comprometido. El esofagograma baritado puede resultar útil en delinear estos QB que típicamente

muestran un desplazamiento anterior de la tráquea y un rechazo posterior del esófago. Para los QB localizados cerca del mediastino, la resonancia magnética ha demostrado ser de utilidad ^{5,6}.

Los estudios anatomopatológicos son imprescindibles para confirmar el diagnóstico, como se observa en la biopsia por aguja fina (BAAF) del quiste, la presencia de células epiteliales bronquiales y moco, no obstante, su especificidad no ha sido aún determinada ⁶.

El tratamiento de elección es quirúrgico, aún en pacientes asintomáticos. El pronóstico sin tratamiento quirúrgico tiene una elevada mortalidad y con cirugía las complicaciones son menores, van del 0 al 14 %. De forma ocasional se ha planteado una actitud conservadora, con seguimiento clínico y radiológico sin cirugía, pues se evita la morbilidad y mortalidad quirúrgica, e incluso se han descrito casos de resolución espontánea del quiste ⁷.

Se presenta un caso novedoso por lo infrecuente de su debut clínico en la edad adulta, no obstante a pesar de ello siempre hay que pensar en la presencia de un quiste broncogénico en pacientes con manifestaciones respiratorias recurrentes, para así poder realizar un correcto diagnóstico nosológico y diferencial, por lo que se describe un caso clínico de quiste broncogénico, raro en edad adulta.

PRESENTACIÓN DE CASO

Paciente de 55 años con antecedentes de enfermedad pulmonar obstructiva crónica, hipertensión arterial y diabetes mellitus tipo II, que llegó al cuerpo de guardia de Hospital General Camilo Cienfuegos en enero de 2015 remitida desde su área de salud por sepsis respiratorias recurrentes durante los últimos tres meses y a pesar de haber recibido múltiples tratamientos la paciente mantenía disnea de moderada intensidad, asociada a tos húmeda y dolor torácico, se le realizaron estudios complementarios de urgencia observándose radiopacidad en base pulmonar derecha, de aspecto tumoral; se decidió su ingreso. Al examen físico respiratorio se constató disminución de la expansibilidad torácica en el hemitórax derecho, vibraciones vocales aumentadas, matidez en base pulmonar derecha, murmullo vesicular disminuido en base derecha, auscultándose estertores húmedos.

Exámenes complementarios de interés

Hemoquímica: Hb: 130 g/L Hto: 0,45 L/L Erito: 40 mm/h.

Imaginología: Radiografía de tórax anteroposterior (Figura 1): Opacidad con tendencia nodular, hacia base pulmonar derecha, cerca del ángulo cardiofrénico. Índice cardiorácico en límites máximos. Radiografía de tórax lateral derecha (Figura 2): Lesión nodular que impresiona ubicarse en posición anterior, pero no se define claramente. Ultrasonido (USD) abdominal: Imágenes ecolúcidas intra y retroperitoneales en excavación pélvica, de paredes finas, algunas de ellas multinodulares, la mayor de ellas mide 60 x 64 mm. Tomografía axial computarizada (TAC) de pulmón simple (Figura 3): En región paramediastínica derecha masa hipodensa de 25 UH, que mide 41 mm de diámetro.

TAC de pulmón contrastada: Lesión que no cambia su densidad.

Pruebas funcionales respiratorias: Trastorno restrictivo y obstructivo severo. **Broncoscopia:** Laringe, tráquea y carina normal, árbol bronquial derecho e izquierdo signos de bronquitis.

Histología: Biopsia de pulmón por aguja gruesa guiada por ultrasonido: Epitelio respiratorio y glándulas submucosas bronquiales. Epitelio pseudoestratificado cilíndrico ciliado que reviste una formación quística.

Diagnóstico definitivo: Quiste broncogénico.

Tratamiento: Tratamiento sintomático, se difiere el tratamiento quirúrgico por alto riesgo quirúrgico.



Figura 2: Radiografía de tórax lateral derecha.

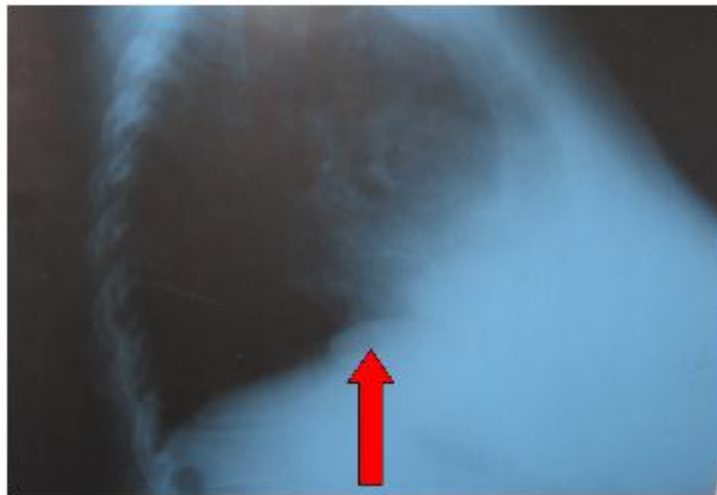


Figura 3: Tomografía axial computarizada (TAC) de pulmón simple.



DISCUSIÓN

Desde la primera descripción de los quistes bronquiales en 1859; se han publicado varias revisiones que analizan el tema, tanto en los infantes como en los adultos. Es una de las malformaciones pulmonares más comunes.⁸

El quiste broncogénico se produce por el aislamiento de un fragmento de esbozo bronquial durante el proceso de ramificación. Puede ser intrapulmonar (alrededor de dos tercios) o mediastínico, en general en la proximidad de la carina traqueal¹. También como localización atípica se pueden encontrar en el retroperitoneo y en otros órganos siguiendo estrechamente la dirección de la división de la yema traqueobronquial. La presencia del epitelio columnar no necesariamente prueba el origen congénito². En relación con el diagnóstico clínico, solamente un tercio de los pacientes se diagnostica en etapa adulta principalmente por infecciones intercurrentes, en forma de neumonías repetidas, de evolución tórpida o abscesos pulmonares⁵, como ocurrió en el caso presentado.

Precisamente por el diagnóstico tardío que se le ha realizado a un grupo de enfermos, se han postulado algunas hipótesis sobre el probable origen del quiste broncogénico, al respecto se ha planteado que en el tejido pulmonar normal, con vascularización aberrante y tras infecciones recurrentes se produce la destrucción de la conexión traqueobronquial con pérdida de la túnica celular. Otra hipótesis describe la obstrucción del lóbulo inferior por neumonía, seguido por una interrupción parcial o completa del riego arterial pulmonar normal y por la adquisición de un riego sistémico a través de la parasitación de arterias que normalmente pueden hallarse en el ligamento pulmonar inferior. Estas arterias, las cuales irrigan el tejido de granulación, se hipertrofian a medida que van siendo incorporadas dentro del parénquima pulmonar, propiciando así la formación de la lesión quística⁵.

El cuadro clínico varía de acuerdo con su localización y tamaño. Los síntomas se presentan en la mayoría de los casos desde la infancia, aunque pueden presentarse en cualquier edad, siendo asintomáticos hasta en el 19 % de los casos. Cuando se manifiestan clínicamente es por razones compresivas o infecciosas. Los síntomas respiratorios son debidos a la compresión de la vía aérea, ya que al comprimirse la tráquea se puede presentar tos, estridor y sibilancias⁵. Al explorar el tórax podemos encontrar incremento en la frecuencia respiratoria, retracción supraesternal, tiraje subcostal, estertores difusos bilaterales y signos de condensación pulmonar en el caso de proceso

infeccioso agregado, además puede manifestarse fiebre, expectoración y dolor torácico. La presencia de hemoptisis puede ser el único síntoma. En los casos en que existe compresión de las arterias pulmonares quizá haya tos crónica, disnea y dolor de tipo pleurítico. Otros síntomas pueden ser disfagia, arritmias cardíacas, pericarditis recurrente, insuficiencia cardíaca derecha y compresión de vena cava superior; en el caso de los quistes abdominales, náuseas, vómitos y dolor en epigastrio ⁵.

Gran variedad de patologías deben ser consideradas cuando han de establecerse los diagnósticos diferenciales en ambas categorías (sintomáticos o asintomáticos), mediastinales o intrapulmonares. En los casos de localización intrapulmonar del quiste broncogénico hay que realizar diagnóstico diferencial de las neoplasias, granulomas, hematomas, malformaciones vasculares, secuestro pulmonar, abscesos, bullas infectadas e hidatidosis pulmonar.

En relación con los de localización mediastinal el diagnóstico diferencial ha de plantearse con la presencia de metástasis intrapulmonares, teratomas, tumores neurogénicos, sarcoma embrionario, adenomegalias inflamatorias, secuestro pulmonar intralobar, hemangioma, lipomas.

Clásicamente, la radiología del tórax revela una masa densa homogénea, redondeada, bien delimitada, sin calcificaciones ⁹, rara vez se observan signos de atrapamiento de aire, de infección o ruptura con presencia de niveles hidroaéreos. La presencia de contornos lobulado, o variaciones en la densidad del QB con calcificaciones, atelectasia, o neumonía contribuyen con la incertidumbre en establecer el diagnóstico correcto ¹⁰. La tomografía computarizada proporciona mejor definición de la imagen eliminando la necesidad de realizar otros estudios. Clásicamente se observa densidad de agua (0-20 Hounsfield), sin embargo, la presencia de infección, o cantidades variables de proteína y calcio en el contenido del quiste, hace que esta sea aún más alta, encontrándose en el rango de los tejidos sólidos incrementándose de esta manera las dificultades diagnósticas ¹¹.

Los pacientes con quistes bronquiales con criterios de benignidad que se les hace seguimiento por tomografía axial computarizada durante un período de seis meses a varios años, se observó que no presentaron síntomas, basado en estos hallazgos se recomienda la observación clínica en este subgrupo de pacientes ¹².

En 1981, Delarue y colaboradores ¹³ fueron los primeros en sugerir que la presencia de epitelio bronquial y moco en el estudio de las muestras obtenidas por aspiración del contenido de los quistes, puede ser patognomónico para establecer el diagnóstico, estos investigadores no especifican la vía de acceso y la técnica empleada. El valor diagnóstico de la presencia de moco y del epitelio bronquial en las muestras obtenidas por punción con aguja fina, permanece incierto, en ninguna de los estudios realizados se ha señalado su sensibilidad y especificidad. La aspiración transbronquial o transesofágica con aguja fina ha sido recomendada como una alternativa válida a la cirugía para su manejo conservador, sin embargo, los estudios de seguimiento a largo plazo sin recurrencia están entre los tres meses a un año ⁶.

El único tratamiento en estos pacientes es el quirúrgico, que consiste en una resección pulmonar, frecuentemente una lobectomía, teniendo especial cuidado en la disección de los vasos del ligamento pulmonar inferior por ser de paredes finas y frágiles, estar cubiertos de densas adherencias y tener gran tendencia a la retracción. Todos los quistes broncogénicos deben ser operados ya que pueden crecer y producir síntomas por compresión, porque la comunicación con el árbol traqueobronquial lleva a la infección del quiste y, hay reportes de casos en que se produjo degeneración maligna de la pared. La cirugía puede realizarse por toracotomía convencional o videotoracoscopia, como reportan Suen HC y Lewis RJ. Por último, si bien se pueden presentar complicaciones graves, el pronóstico es excelente tras la operación. Aunque se han descrito casos de regresión espontánea de esta enfermedad (algunos informan de hasta el 34 %), no hay que esperar por esta evolución en los casos diagnosticados, por la gran incidencia de complicaciones

^{14,15}. El caso reportado no fue posible realizarle el tratamiento quirúrgico por el alto riesgo debido a los antecedentes patológicos personales. A pesar de esto la evolución del caso ha sido favorable.

CONCLUSIONES

Los quistes broncogénicos asintomáticos pueden en cualquier momento de su evolución dar manifestaciones clínicas, como las neumonías recurrentes, además de asociarse con complicaciones que ponen en peligro la vida de los pacientes; debe ser descartada la presencia de una neoplasia de pulmón en estos casos, aunque siempre se puede establecer un diagnóstico preciso, no siempre es posible la resección quirúrgica como se vio en nuestro caso, debido al alto riesgo quirúrgico de la paciente. La extirpación de los quistes en pacientes sintomáticos tiene un pronóstico excelente, evitando así la incidencia de graves complicaciones propias de esta enfermedad.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Nakamura T, Takayama S, Oki T, Otsuki Y, Funai K, Toyoda F. Intrapulmonary bronchogenic cyst mimicking primary lung cancer with atypical radiological findings. *Int J Case Rep Images* [Internet]. 2015 [cited: 2016/02/10];6(8):474-476. Available from: <http://www.ijcasereportsandimages.com/archive/2015/008-2015-ijcri/CR-10539-08-2015-nakamura/ijcri-1053908201539-nakamura-full-text.php>
2. Jiang JH, Yen SL, Lee SY, Chuang JH. Differences in the distribution and presentation of bronchogenic cysts between adults and children. *Pediatr Surg* [Internet]. 2015 Mar [Cited:2016/02/10];50(3):399-401. Available from: <http://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S0022346814003996>
3. Criscione A, Scamporlino A, Calvo D, Migliore M. Lung-sparing approach for an intrapulmonary bronchogenic cyst involving the right upper and middle lobes. *BMJ Case Rep* [Internet]. 2013 oct [Cited: 2016/02/10]; 2013. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3822194/>
4. Kravitz RM. Congenital malformations of the lung. *Pediatr Clin North Am* [Internet]. 1994 Jun [Cited: 2016/02/10]; 41(3):453-72. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/?term=Kravitz+RM.+Congenital+malformations+of+the+lung>
5. St Georges R, Deslauriers J, Duranceau A, Vaillancourt R, Beauchamp CT, Page A, et al. Clinical spectrum of bronchogenic cysts of the mediastinum and lung in the adult. *Ann Thorac Surg* [Internet]. 1991 Jul [cited: 2016/02/10];52(1):6-13. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/?term=Clinical+spectrum+of+bronchogenic+cysts+of+the+mediastinum+and+lung+in+the+adult.+Ann+Thorac+Surg+2011>
6. Kuhlman JE, Fishman EK, Wang KP, Zerhouin EA, Siegelman SS. Mediastinal cysts diagnosis by CT and needle aspiration. *AJR Am J Roentgenol* [Internet]. 1988 Jan [cited: 2016/02/10];150(1):75-8. Available from: <http://www.ajronline.org/doi/abs/10.2214/ajr.150.1.75>
7. Bailey PV, Tracy T, Connors RM, DeMello D, Lewis JE, Weber RT. Congenital bronchopulmonary malformations diagnostic and therapeutic considerations. *J Thorac Cardiovasc Surg* [Internet]. 1990 Apr [cited: 2016/02/10];99(4):597-602. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/2319779>
8. Meyer H. Augerborene blasige Missbildung Jer Lungen,nebst einigen Bernerkuiu uber Cyanose. *Aus Lungenledien. Arch F Pathol Anat* [Internet]. 1895;16:78-90. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC1251159/>
9. Amendola MA, Shirazi KK, Brooks J, Agha FP, Dutz W. Transdiaphragmatic bronchopulmonary foregut anomaly dumbbell bronchogenic cyst. *AJR Am J Roentgenol* [Internet].1982 Jun [cited: 2016/02/10];138(6):1165-7. Available from: <http://www.ajronline.org/doi/abs/10.2214/ajr.138.6.1165>
10. Rodgerds BM, Harman PK, Jogson AM. Bronchopulmonary foregut malformations. The spectrum of anomalies. *Ann Surg* [Internet]. 1986 May [cited: 2016/02/10];203(5):517-24. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC1251159/>
11. Lyon RD, Me Adams HP. Mediastinal bronchogenic cyst. *Radiology*. 2013;186:427-428
12. Pugatch RD, Faling LJ, Robbins An, Spira R. CT diagnosis of benign mediastinal abnormalities. *AJR* [Internet]. 1980 [cited: 2016/02/10]; 134:685-889. Available from: <http://www.ajronline.org/doi/pdf/10.2214/ajr.134.4.685>
13. Delarue NC, Pearson FG, Cooper JD, Todd TRJ, Ilves R, Sanders DE. Development bronchopulmonary disease in adult practical clinical considerations. *Can J Surg* [Internet]. 1981 Jan [cited: 2016/01/10]; 24(1):23-9, 31. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/7459732>
14. Suen HC, Mathisen DT, Grillo HC. Surgical management and radiological characteristics of bronchogenic cysts. *Ann Thorac Surg* [Internet]. 2013 [Internet]; 55: 476481 Available from: <http://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S000349759391022F>
15. Lewis RJ, Caccavale RJ, Sisler GE. Imaged thoracoscopic surgery.a new thoracic technique for resection of mediastinal cysts. *Ann Thorac Surg* [Internet]. 1992 Feb [cited: 2016/01/15];53(2):318-20. Available from:

<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/?term=Imaged+thoracoscopic+surgery.a+new+thoracic+technique+for+resection+of+mediastinal+cysts.+Ann+Thorac+Surg+2012>

Recibido: 2016-03-17
Aprobado: 2016-10-12