

گزارش یک مورد کودک مبتلا به کیست برونکوژنیک همراه با مروری بر تشخیص و درمان

چکیده

در علم پزشکی، بسیاری از موارد به ظاهر مشکل و حتی نادر را می توان با توجه و دقتی که مستلزم زیرکی زیادی هم نیست، به آسانی و به موقع تشخیص داد و در نتیجه درمان مناسبتری را نیز انجام داد. در این گزارش علاوه بر معرفی یک مورد بیماری نادر، به بحث در رابطه با آن پرداخته می شود. بیمار دختر ۱۱ ماهه ای با علائم تنفسی بود که از ۳ ماهگی دچار سرفه و خلط فراوان شده بود. در بررسیهای انجام شده ترشح و التهاب در برونشها، پرهوایی در هر دو ریه (بیشتر در سمت راست) و توده مدیاستن خلفی در سمت راست مشاهده شد. بیمار با تشخیص احتمالی کیست برونکوژنیک تحت عمل جراحی قرار گرفت که گزارش پاتولوژی نیز این تشخیص را تأیید کرد. کیست برونکوژنیک ضایعه مادرزادی خوش خیم نادری از روده پیشین قدامی است که ۱۰٪ از توده های مدیاستن را در اطفال تشکیل می دهد و اغلب در مدیاستن خلفی و نزدیک خط وسط یافت می شود. در کودکان همیشه علامت دار است اما در ابتدای تولد بندرت مشخص می گردد. به دلیل داشتن عوارض خطرناک، تشخیص زودرس آن بسیار ضروری است. رادیوگرافی قفسه سینه شک تشخیصی را ایجاد می کند و CT اسکن ریه باکتر است بسیار کمک کننده است. در صورت تشخیص، جراحی الزامی است. کیست برونکوژنیک باید در تشخیص افتراقی توده های مدیاستن، سرفه های مزمن خلطدار، عفونتهای مکرر ریوی، پرهوایی یکطرفه ریه در گرافیاها و FTT در اطفال قرار گیرد.

دکتر حسین سرداریزاده I

*علی کبیر II

کلیدواژه ها: ۱- کیست برونکوژنیک ۲- توده مدیاستن ۳- جراحی

مقدمه

یافت می شوند (۶ و ۴) اما بعضی منابع معتقد هستند که در سمت چپ شایعتر می باشند (۱). در سال ۱۹۴۸ تقسیم بندی کیست برونکوژنیک توسط Maier و براساس محل آنها صورت گرفت که به ترتیب شیوع عبارت بودند از: ۱- کارینا ۲- تراشه ۳- مری ۴- ناف ریه و ۵- سایر انواع (۶). این کیستها ۱۰٪ از توده های مدیاستن را در اطفال تشکیل می دهند (۷ و ۱).

کیستهای برونکوژنیک ضایعات مادرزادی خوش خیم و نادری هستند که از روده پیشین (foregut) قدامی که سیستم تنفسی را تشکیل می دهد ایجاد می شوند. این ضایعات در هفته پنجم یا حداکثر قبل از هفته شانزدهم جنینی بوجود می آیند (۴-۱). محل آنها نزدیک تراشه یا برونش اصلی، بویژه چسبیده به خلف کارینا و در مدیاستن خلفی یا میانی می باشد (۱، ۳، ۶ و ۷). این ضایعات معمولاً منفرد بوده و در سمت راست، نزدیک خط وسط،

(I) استادیار بیماریهای اطفال، فوق تخصص نوزادان، دانشگاه علوم پزشکی و خدمات بهداشتی- درمانی ایران، تهران

(II) دانشجوی پزشکی، عضو کمیته پژوهشی دانشجویی دانشگاه علوم پزشکی و خدمات بهداشتی- درمانی ایران، تهران (* مؤلف مسؤول)

معرفی بیمار

بیمار دختر ۱۱ ماهه‌ای بود که از طریق زایمان واژینال و با وزن ۲۲۰۰ گرم متولد شده بود. وی از ۳ ماهگی دچار خس‌خس سینه، سرفه، ترشحات فراوان و خشونت صداهای ریوی همراه با رالهای مرطوب پراکنده (fine crackles) گردیده بود.

کودک بطور مکرر بستری شده بود و هر بار با دریافت آنتی‌بیوتیک‌های مختلف و بهبودی مختصر، مرخص گردیده بود. به علت باقی ماندن علائم در ۱۰ ماهگی، با شک به جسم خارجی تحت برونکوسکوپی قرار گرفت که جسم خارجی مشاهده نشد. در ۱۱ ماهگی به علت سرفه مزمن و خس‌خس سینه همراه با دیسترس تنفسی شدید به بیمارستان مراجعه کرد که در هنگام مراجعه، سیانوز شدید داشت و بطور مجدد با دریافت آنتی‌بیوتیک، اکسیژن و کورتیکواستروئید در طی ۴ روز بستری، بهتر شد و با تشخیص احتمالی پلاک موکوسی (Mucous plug) برای بار دوم برونکوسکوپی گردید که برونش سمت راست طبیعی اما برونش سمت چپ حاوی ترشحات غلیظ، قرمز و ملتهب بود.

در این زمان کودک ۷۹۰۰ گرم وزن داشت. در رادیوگرافی قفسه سینه، اندازه قلب در حد طبیعی بود و ضایعه پارانشیمال وجود نداشت، زوایای جنبی آزاد و استخوانها بدون ضایعه پاتولوژیک بودند.

پس از ارجاع مجدد عکس از طرف متخصص نوزادان به بخش رادیولوژی، با نظر به پرهوایی ریه راست و تأیید رادیولوژیست، برای سومین بار توصیه به برونکوسکوپی شد که جسم خارجی دیده نشد اما ترشحات چرکی، بویژه در برونش راست و تورم و التهاب، بخصوص در برونش چپ دیده شد. تست عرق، جهت رد فیبروز کیستیک، منفی بود.

در بلع باریم عبور باریم از مری طبیعی بود اما اثر فشاری روی قسمت فوقانی مری مشاهده گردید. در عین حال شواهدی دال بر هرنی هیاتال، ریفلاکس یا فیستول تراکتوبرونشیمال دیده نشد. در Spiral axial CT Scan از

توراکس با قطعات ۸ میلی متری و بدون تزریق ماده حاجب، تجامد آلوئولی (Alveolar consolidation) در لوب میانی ریه راست، پرهوایی در هر دو ریه بخصوص در سمت راست و نیز توده مدیاستن خلفی در سمت راست که باعث تنگی برونش به علت فشار خارجی شده بود، دیده شد. نمای عروقی نرمال بود.

لنفادنوپاتی ناف ریه یا شواهدی از برونشکتازی وجود نداشت. با توجه به محل توده، تشخیص افتراقی‌هایی که برای وی مطرح شد عبارت بودند از: کیست برونکوژنیک (bronchogenic cyst)، کیست نوروآنتریک (Neuroenteric cyst)، نوروبلاستوما (Neuroblastoma)، گانگلیونوروما (Ganglioneuroma)، آنوریسم آئورت صعودی، فتوکروموسیتوما، لیومیوما، لیپوما، همانژیوما، تومورهای ستون مهره‌ها (Osteoblastoma) و هیپرپلازی بافت لنفاوی (Lymphoid hyperplasia) (۸).

در ۱۲ ماهگی بیمار به بیمارستان مراجعه و با تشخیص احتمالی کیست برونکوژنیک تحت عمل جراحی قرار گرفت. در توراکتومی سمت راست، توده کیستیک با اثر فشاری روی برونش راست مشاهده و برداشته شد که تشخیص ماکروسکوپی آن کیست برونکوژنیک بود. در گزارش پاتولوژی از نظر ماکروسکوپی، تکه‌ای از بافت قهوه‌ای روشن، نامنظم به ابعاد ۲/۵×۲×۰/۵ سانتیمتر مکعب باقوام الاستیک و ظاهری اسفنجی تا جامد، در برش ذکر گردید.

از نظر میکروسکوپی نیز، ساختار کیستیک با حفرات متعدد دارای اندازه‌های متفاوت و اپیتلیوم استوانه‌ای مطابق کاذب مژده‌دار که توسط بافت همبندی فیبروزی رشته‌های عضلانی صاف پوشیده شده بود، با ارتشاح موضعی سلولهای تک‌هسته‌ای لنف، گزارش شد.

تشخیص نهایی پاتولوژی، کیست برونکوژنیک در مدیاستن خلفی بود. در رادیوگرافی کنترل، ۲ هفته بعد از عمل، هیچ یافته پاتولوژیک، مشاهده نشد و کودک بدون علامت بود. در پیگیری بیمار، ۶ ماه بعد از عمل نیز، علامت یا نشانه بالینی یافت نشد.

بحث

کیستهای برونکوژنیک ضایعاتی مادرزادی هستند که اندازه آنها بین ۲ تا ۱۰ سانتیمتر بوده (۶ و ۲) و اغلب گرد و چند حفره‌ای می‌باشند (۱).

در برونکوسکوپي میکروسکوپي، هر یک از بافتهای تراشه و برونش از قبیل بافت همبند فیبرو، غدد مترشحه موکوس، غضروف، عضله صاف و اپی‌تلیوم استوانه‌ای مطبق کاذب مژده‌دار که موکوس ترشح می‌کند یا اپی‌تلیوم سنگفرشی مطبق دیده می‌شود (۹ و ۱۰).

مایع داخل کیست قوامی شبیه آب یا ژلاتین می‌تواند داشته باشد (۱۰ و ۱۱). به همین علت دانسیته‌ای یکنواخت، لبه‌ای صاف و شکلی گرد یا شبیه قطره اشک دارند (۱۱). اگر در هفته‌های اول زندگی جنینی ایجاد شوند، در مدیاستن بوده و با سیستم ریوی ارتباط ندارند. و اگر دیرتر ایجاد شوند، ممکن است با مجاری هوایی مرتبط بوده و داخل ریوی باشند اما معمولاً چنین ارتباطی وجود ندارد (۱۲ و ۱۳).

محل‌های غیرمعمول این کیستها؛ پوست، بافتهای زیر پوستی، پریکارد، بافتهای اطراف استرنوم، گردن، سخت‌شامه و داخل نخاع می‌باشد.

نوع خاصی از این کیست نوع دمبلی (dumbbell type) نام دارد که قسمتی از آن در داخل توراکس و قسمتی در داخل شکم قرار دارد (۲، ۳ و ۷).

علائم و نشانه‌ها: این بیماری در هر سن، از نوزادی تا دهه هفتم زندگی دیده می‌شود که در کودکان همیشه و در بالغین تا ۷۰٪ موارد علامت‌دار است (۱۲). این کیستها بندرت در ابتدای تولد مشخص می‌شوند و تشخیص معمولاً تا زمانیکه کیستها بزرگ یا عفونی شوند، به تأخیر می‌افتد (۴).

در نوزادان، شیرخواران و کودکان، اغلب با فشار روی مجاری هوایی باعث تنگی نفس شدید، سیانوز، ویز و استریدور می‌شود (۱۲ و ۱۳).

ریه درگیر ممکن است در اثر آمفییزم انسدادی دچار پرهوایی گردد که باعث انحراف شدید مدیاستن، آتکتازی فشاری و عفونت ریه مقابل می‌شود (۱۲، ۱۳ و ۱۴). بطور کلی علائم شایع این بیماری عبارتند از: عفونت مکرر مجاری

تنفسی فوقانی، احساس مبهم ناراحتی و درد پشت جناغ، مشکلات تنفسی (سرفه خلط‌دار، تنفس صدادار، استریدور، تنگی نفس و سیانوز)، دیسفاژی، هموپتیزی، تب، اختلالات در بلع باریم یا استفراغ به علت تنگی و مضرس شدن مری (۴، ۷، ۱۳ و ۱۴).

تشخیص: به دلیل احتمال پارگی کیستهای برونکوژنیک به برونش یا پلور، خونریزی زیاد، عفونی شدن و مرگ ناگهانی؛ تشخیص زودرس بسیار ضروری می‌باشد (۶). اگرچه اغلب موارد گزارش شده کیستهای برونکوژنیک بطور اتفاقی کشف شده بودند (۲).

رادیوگرافی ساده قفسه سینه ممکن است باعث شک تشخیصی به کیست برونکوژنیک شود. اگرچه ممکن است یک توده منفرد گرد و صاف را نشان ندهد اما دیدن آمفییزم یا آتکتازی انسدادی شدید همراه با انحراف مدیاستن باید شک تشخیصی را برانگیزاند. اگر کیست با برونش ارتباط داشته باشد، ممکن است سطح مایع در آن دیده شود (۱۰ و ۱۲).

CT اسکن ریه بخوبی می‌تواند کیست و ارتباط آن با ساختمانهای دیگر مدیاستن را نشان دهد (۷). CT اسکن ریه باکتر است، در نشان دادن توده ای با مشخصات مذکور، کاملاً مفید است که به صورت عدم برداشت ماده حاجب دیده می‌شود.

CT اسکن شکم برای تشخیص احتمالی نوع دمبلی استفاده می‌شود (۱۲). MRI هم می‌تواند کیست را تأیید کند اما اطلاعات بیشتر که از CT اسکن نخواهد داد (۷).

به خاطر اثر فشاری و انسداد برونش که بطور معمول یکطرفه است، برونکوسکوپي جزء اقدامات اولیه جهت رد کردن جسم خارجی می‌باشد. برونکوسکوپي و برونکوگرافی می‌توانند اثر فشاری توسط کیست را تأیید کنند (۷). اما این روشها بسیار خطرناک هستند و معمولاً توصیه نمی‌شوند (۱).

برونکوسکوپي و ازوفاگوسکوپي برای رد ارتباط با ساختمانهای مجاور بکار می‌روند اما تشخیصی نبوده و فقط فشار خارجی را نشان می‌دهند (۱۲). اگر تشخیص تا

موارد عود کیست متعاقب برداشتن ناقص آن، بر این نکته تاکید دارد که باید کیست بطور کامل برداشته شود (۷). این عمل می‌تواند بوسیله توراکتومی یا توراکوسکوپی انجام شود (۷۱).

به دنبال درآوردن کیست، هرگونه نقص در سیستم تنفسی باید بطور اولیه بوسیله پلور، چربی پریکارد یا عضلات بین دنده‌ای ترمیم شود. کیستهای داخل پارانشیم ریه باید با حداقل برداشت از بافت ریه، برداشته شوند (۷). دستکاری مجاری هوایی در حین عمل باید به صورت بی‌حسی یک ریه، جهت آماده کردن آن برای برداشتن کیست و ترمیم صورت گیرد (۶).

عوارض: اگرچه علائم این بیماری بسیار کم است اما عوارض بسیار شایع می‌باشند (۶) شایعترین عارضه، عفونت است.

سایر عوارض عبارتند از: انسداد مکرر مجاری تنفسی، فیستول به سایر اعضای قفسه سینه، خونریزی داخل حفره کیست، سندرم ورید اجوف فوقانی، آریتمی‌ها، انسداد شریان پولمونری در اثر بزرگ شدن کیست، فشار روی ارگانهای حیاتی مجاور، پاره شدن کیست، عود کیست به علت برداشتن ناکامل آن و تغییرات بدخیمی (۷۱، ۶، ۳، ۱).

پیش‌آگهی: در بیماران دارای کیست برونکوژنیک بدون علامت و بدون هیچ ریسک فاکتور طبی دیگر، جراحی باز موربیدیتی و مورتالیتی ندارد (۷۱).

عوارض ناشی از عدم جراحی و باقی ماندن کیست یا عود آن، بسیار بیشتر از جراحی است (۷). در بیمار مورد بحث؛ علائم بالینی، پاتولوژی، اندازه و محل کیست مانند موارد گزارش شده قبلی بوده است. از نظر تشخیصی، برونکوسکوپی جهت رد جسم خارجی انجام شده بود که صحیح بوده است اما تکرار برونکوسکوپی بخصوص به علت تهاجمی بودن آن، توصیه نمی‌شود و اگر در مورد این بیمار به جای تکرار برونکوسکوپی، CT اسکن انجام می‌شد، از نظر تشخیصی مناسب‌تر بود.

انجام بلع باریم و عدم انجام آسپیراسیون با سوزن صحیح بوده است. از بین نرفتن اپی‌تلیوم مژکدار کیست نیز

زمان عفونی شدن به تعویق افتد، اپی‌تلیوم مژکدار از بین می‌رود و تشخیص پاتولوژیک صحیح، غیرممکن خواهد شد (۱۲ و ۴).

در حالتی که این کیستها حاوی ترشحات پروتئینی ضخیم باشند، ممکن است CT اسکن یا MRI، به غلط، مطرح کننده توده‌های جامد باشند (۱۰).

تشخیص، قبل از عمل بوسیله بلع باریم می‌تواند تأیید شود که در آن معمولاً مری به سمت خلف و راست منحرف شده و تراشه به جلو تغییر مسیر داده و باریکتر شده است (۱).

در ۷۰٪ از موارد، در بلع باریم، مضرس شدن مری دیده می‌شود که با لیومیوم مری می‌تواند اشتباه شود (۱۲). از زمانی که درمان انتخابی، برداشتن کامل کیست شده است، تشخیص بافت شناسی بوسیله بیوپسی قبل از عمل، ضروری نمی‌باشد (۱۲).

به علت خطر ایجاد عفونت و احتمال تجمع مجدد مایع، آسپیراسیون با سوزن (Needle Aspiration) جهت تشخیص یا درمان نباید انجام شود (۱۲). هموپتیزی یا هماتمز بدنال پرفوراسیون کیست پوشیده شده با مخاط معده به داخل برونش یا مری رخ می‌دهد.

بررسی تشخیصی در این زمینه بوسیله اسکن تکنیزیوم ۹۹ (^{99m}Tc) انجام می‌گردد (۶). بررسیهای فلوروسکوپیک ممکن است حرکت کیست با تنفس (در صورت اتصال به مجاری تنفسی) یا تغییر شکل آن در طی سیکلهای تنفسی را نشان دهد. شواهدی از خوردگی استخوانی توسط این کیستها گزارش نشده است. کلسیفیکاسیون نیز غیر معمول می‌باشد (۶).

درمان: در صورت عدم وجود کنترااندیکاسیونهای طبی، تمام کیستهای برونکوژنیک پس از تشخیص، باید بوسیله جراحی برداشته شوند (۷۱، ۶، ۲، ۱) اگر چه بسیاری از این کیستها بدون علامت هستند اما برداشتن آنها به کمک جراحی، جهت تأیید تشخیص، تخفیف علائم و پیشگیری از عوارض بخصوص عفونت ثانویه مجاری تنفسی و خطر ایجاد کارسینوم، توصیه می‌شود (۲، ۶، ۷ و ۱۱). گزارشهایی از

5- Foerster HM., Sengupta EE., Montag AG., et al., Retroperitoneal bronchogenic cyst presenting as an adrenal mass, Arch Pathol Lab Med, 1991, 115: 1057-9.

6- Chernick V., Boat TF., Kendig EL., et al., Kendig's disorders of the respiratory tract in children, 6th ed., Philadelphia, W.B.Saunders Company, 1998, PP: 305-7, 766-8.

7- Gharagozloo F., Dausmann MJ., McReynolds SD., Recurrent bronchogenic pseudocyst 24 year after incomplete Excision, Report of a case, chest, 1995, 108(3): 880-3.

8- Reed JC., Chest Radiology, 3rd ed, St. Louis, Mosby, 1991, PP: 147-8, 344-5.

9- Murray JF., Nadel JA., Mason RJ., et al., Textbook of respiratory medicine, 2nd ed., Philadelphia, W.B.Saunders Company, 1994, PP: 455.

10- Tokuda N., Naito S., Uozumi J., et al., A retroperitoneal bronchogenic cyst Treated with laparoscopic surgery, J Urol, 1997, 157: 619.

11- George RB., Light RW., Matthay MA., et al., Chest medicine: Essential of pulmonary and Critical care medicine, 3 rd ed, Baltimore, Williams & Wilkins, 2000, PP: 466.

12- Grassi C., Brambilla C., Costabel U., et al., Clinical Medical Series: Pulmonary diseases, 1st ed., London, McGraw-Hill International, 1999, PP: 443.

13- Saldana MJ., Adachi M., Angritt P., et al., Pathology of pulmonary disease, 1st ed., Philadelphia, J.B. Lippincott Company, 1994, PP: 80.

14- Ziai M., Pediatrics, 4th ed., U.S.A. Brown and Company, 1990, PP: 157.

نشاندهنده عفونی نشدن کیست بوده است. پیشنهاد می‌شود که این بیماری در کنار سایر تشخیص‌های افتراقی در نظر گرفته شود، بویژه در زمانی که پرهوایی در عکس ریه وجود دارد باید شک تشخیصی در این مورد تقویت شود و برونکوسکوپی (می‌توان انجام داد)، CT اسکن با تزریق و در صورت تشخیص، جراحی انجام گردد و در صورتی که شک تشخیصی ضعیف است بر اساس علائم و معاینه بیمار و تأکید پاراکلینیک سایر بیماریها بررسی شوند.

این مقاله بر این نکته تأکید دارد که کیست برونکوژنیک اگر چه یک بیماری نادر است اما باید در تشخیص افتراقی توده‌های مدیاستن، سرفه‌های مزمن خلط‌دار، عفونتهای مکرر ریوی، پرهوایی یک‌طرفه ریه در گرافی معمولی قفسه سینه یا CT اسکن ریه و FTT در اطفال قرار گیرد. اهمیت این موضوع با تکیه بر این نکته مشخص می‌شود که اغلب موارد گزارش شده کیستهای برونکوژنیک بطور اتفاقی کشف شده بودند (۲).

موردی که در این مقاله معرفی شد نیز دیر تشخیص داده شده بود که در نهایت در اثر دقت متخصص نوزادان در گرافی معمولی قفسه سینه کودک تشخیص در نظر گرفته شده بود.

منابع

1- Baum GL., Carpo JD., Celli BR., et al., Textbook of pulmonary diseases, 6th ed., Philadelphia, Lippincott-Raven, 1997, PP: 1411-12, 1442.

2- Centinkursun S., Ozturk H., Celasun B., et al., Isolated Abdominal bronchogenic cyst: A case report, Eur J Pediatr Surg 1997, 7: 103-5.

3- Zvulunov A., Amichai B., Grunwald MH., et al., Cutaneous bronchogenic cyst., Delineation of a poorly recognized lesion, Pediatr dermatol, 1998, 15(4): 277-81.

4- Behrman RE., Kliegman RM., Jenson HB., et al., Nelson Textbook of pediatrics, 16th ed, Philadelphia, W.B.Saunders company, 2000, PP: 1273-4.

A CASE REPORT OF BRONCHOGENIC CYST IN A CHILD WITH REVIEW OF DIAGNOSIS AND TREATMENT

H. Sardarizadeh, MD^I **A. Kabir, MD*^{II}

ABSTRACT

In medicine many cases which seem to be difficult and are rarely diagnosed can be discovered easily if precise attention be paid towards them so that they can be treated properly. This can be proved by discussing the following case. The case to be presented is an 11 month years old female baby with chief complaint as respiratory symptoms since 8 months ago. During the work up secretions and inflammations in both bronchuses, hyperinflation in both lungs - especially in right - and right posterior mediastinal mass were observed. The patient underwent surgery under the probable diagnosis of having a bronchogenic cyst (BC) which later on was documented by the pathologist. BCs are rare benign congenital developmental lesions of ventral foregut. They account for approximately %10 of mediastinal masses among children. These occur most frequently in the posterior part of mediastinum, usually more common on the right and middle. They are always symptomatic in children but rarely diagnosed at the time of the birth. Because of dangerous complications, early diagnosis is imperative. A chest radiograph raises any suspicion about having a BC, that can be documented by a chest CT-scan with contrast. All identified BCs should be surgically removed. BCs should be placed in the differential diagnosis of mediastinal masses, chronic productive cough, recurrent pulmonary infection, unilateral lung hyperinflation in radiography, and FTT in children.

Key Words: 1) Bronchogenic cyst 2) Mediastinal mass 3)Surgery

I) Assistant professor of pediatrics disease, Neonatologist, Iran University of Medical Sciences and Health Services, Tehran, Iran.

II) Medical student, Fellow of Research committee, Iran University of Medical Sciences and Health Services, Tehran, Iran. (*Corresponding author)