

CISTO BRONCOGÊNICO NA CRIANÇA

Souza JA, Volpato AB, Marques C, Capella MR, Goldberg P, Quaresma ER, Araújo EJ, Pereima MJL, Camacho JG, Feijó RS, Souza Jr WA, Colombeli EM.

Serviço de Cirurgia Pediátrica Hospital Infantil Joana de Gusmão - Universidade Federal de Santa Catarina – Florianópolis - Santa Catarina -Brasil

RESUMO

Introdução: O cisto broncogênico é uma lesão congênita do trato respiratório, resultante de uma divisão anormal da árvore traqueobrônquica nas primeiras semanas de gestação. Dependendo da época em que este processo ocorre, o cisto pode ser intrapulmonar ou mediastinal. Ele pode ser diagnosticado ao acaso, por radiografia simples de tórax, em pacientes assintomáticos ou se apresentar com sintomas variados. O tratamento de escolha é cirúrgico em todos os pacientes.

Objetivo: Este trabalho teve como objetivo avaliar os prontuários de 13 pacientes operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão, no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002.

Métodos: Estudo clínico, com delineamento transversal e de coleta retrospectiva dos dados.

Resultados: Nessa casuística, 61,54% dos cistos eram mediastinais e 38,46% eram intrapulmonares. Das 13 crianças operadas 6 eram meninos (46,15%) e 7 eram meninas (53,85%) e, a maioria delas eram procedentes de outras mesorregiões do estado (61,54%). A maioria dos pacientes apresentou sintomas respiratórios (69,23%) ao diagnóstico. Todos os pacientes realizaram radiografia simples de tórax e, 38,47% deles realizaram tomografia computadorizada de tórax. Pacientes com cistos mediastinais foram submetidos à excisão dos cistos e pacientes com cistos intrapulmonares à lobectomia. Complicações pós-operatórias foram raras. Não houve óbitos nessa casuística.

Conclusões: Infecção respiratória de repetição e insuficiência respiratória aguda são as principais manifestações clínicas de cistos broncogênicos (CB) em crianças. Os CB de mediastino são diagnosticados em pacientes com infecção de repetição ou em pacientes assintomáticos, como achado incidental em exame de imagem. A excisão cirúrgica do cisto ou a lobectomia são curativos.

Descritores: cisto broncogênico, cisto pulmonar

ABSTRACT

Bronchogenic cysts are congenital lesions of the respiratory tract, they arise from abnormal budding of the primitive tracheobronchial tree during the first weeks of pregnancy. Depending on the timing of this process, cysts can be located within the lung parenchyma or within the mediastinum. They may be detected on routine chest radiography in asymptomatic patients or may present with various manifestations. Surgery is considered the treatment of choice, in all patients. The aim of this study was to evaluate medical records of 13 patients operated in the Hospital Infantil Joana de Gusmão, from January 1st 1980 to December 31st 2002. In this casuistic, 61,54% of the cysts were located in the mediastinum, and 38,46% in the pulmonary parenchyma. Of the 13 patients operated, 6 (46,15%) were boys and 7 girls

(53,85%), and the most of them were from other regions of the state (61,54%). The most of the patients presented with respiratory symptoms (69,23%). All patients underwent chest film, and computed tomography of the torax were performed in 38,47% of the patients. Surgery in these patients consisted of excision of the lesion for mediastinal cysts and lobectomy for intraparenchymal ones. Postoperative complications were rare. There was no operative mortality.

Key words: bronchogenic cyst; lung cyst; cisto broncogênico

INTRODUÇÃO

O cisto broncogênico é uma anomalia congênita, originária de um distúrbio no desenvolvimento da árvore traqueobrônquica ¹⁻¹⁷. Entre o 26º e 40º dia de gestação o intestino primitivo divide-se em segmento dorsal e ventral, onde o dorsal diferencia-se no esôfago e o ventral desenvolve a árvore traqueobrônquica. Durante o processo de ramificação brônquica, é sugerido que um grupo de células se desprende e adquire desenvolvimento autônomo, originando o cisto broncogênico ^{2, 6, 8, 12, 18-20}. A sua localização vai depender do momento do desenvolvimento em que o defeito ocorre; se a separação ocorre por volta da 4ª semana de gestação, o cisto tende a ser mediastinal, se ocorre depois da 6ª semana de gestação a partir dos brônquios distais, o cisto se desenvolve no parênquima pulmonar ^{4, 6, 7, 9, 12, 18}.

Os cistos broncogênicos são lesões relativamente incomuns, e representam de 6% a 15% das massas mediastinais primárias ^{19, 20}, podendo chegar a 18 % como descreveram Wychulis *et al.* ²¹ e Martinod *et al.* ²². Entretanto, são o tipo mais comum de cisto intratorácico originário do intestino anterior (71%) ^{20, 23}. A distribuição entre os sexos é de 1:0,76 entre meninos e meninas, respectivamente ¹⁹.

Os cistos broncogênicos mediastinais são mais comuns ^{4, 5, 12, 14-16, 19, 24-27} e são classificados, de acordo com Maier ²⁴, em paratraqueal, carinal, hilar e paraesofágico. Os intrapulmonares são menos freqüentes, predominando em lobos inferiores ^{4, 7, 10-12, 28}, sem predileção por lado direito ou esquerdo ^{4, 12}.

Os sintomas variam conforme a idade e a localização do cisto. Em crianças menores de um ano predominam os sintomas de insuficiência respiratória, enquanto em crianças maiores predomina o quadro de infecções respiratórias de repetição ^{5, 10}. Nos cistos mediastinais os sintomas compressivos são mais comuns ^{5, 12, 14, 16, 17, 19, 20, 22, 24, 25, 29, 30}, como por exemplo, dor torácica, disfagia, dispnéia e tosse, devido a compressão ou irritação das vias aéreas ou do esôfago ¹². Nos cistos intrapulmonares os sintomas estão relacionados com infecção do cisto ou do parênquima adjacente a ele ^{5, 6 10-12, 16-19, 23, 25-27, 29}.

A incidência de anomalias associadas pode chegar a 25 %, como relataram Ramenofsky *et al.* ³⁰ ou até 47% segundo Ribet *et al.* ¹¹ e dentre elas estão: seqüestro intrapulmonar, tórax em funil, ducto arterioso persistente, estenose parcial da artéria pulmonar direita, lobo pulmonar acessório, defeito pericárdico, parede abdominal hipoplásica e megacólon congênito ¹¹.

A associação de cistos broncogênicos com outras malformações do intestino anterior é rara ³¹. Kitano *et al.* ³¹ descreveram um caso de associação de cisto broncogênico com duplicação esofágica. Yasufuku *et al.* ³², relataram um outro caso com esta mesma associação, entretanto com comunicação entre as duas

malformações. Black *et al.*³³ relataram a associação de seqüestro pulmonar com cisto broncogênico mediastinal, em uma criança de um ano de idade.

A malignização de cistos broncogênicos é considerada rara^{4, 5, 15}. Krous e Sexauer³⁴ descreveram um caso de rabdomiosarcoma e Endo *et al.*³⁵ relataram um caso de carcinoma bronquioloalveolar originários em cistos broncogênicos intrapulmonares. Suen *et al.*¹⁶ descreveram um caso de adenocarcinoma, em uma menina de oito anos proveniente de um cisto broncogênico mediastinal.

Perante a suspeita clínica, a radiografia simples de tórax constitui-se no exame complementar mais útil para o diagnóstico de cisto broncogênico^{3-6, 10-12, 14, 16, 19, 26, 28, 30, 36, 37}. Os cistos mediastinais caracterizam-se por serem ovais, bem delimitados, com densidade de partes moles^{3, 4, 6, 8, 14, 16, 29, 30} e, os intrapulmonares caracterizam-se por lesões císticas intraparenquimatosas^{8, 16, 30, 37}. Em 30% dos casos a primeira radiografia de tórax não mostra o cisto, sendo a tomografia computadorizada o melhor exame para diagnosticar os cistos broncogênicos pequenos ou invisíveis às radiografias habituais de tórax². O diagnóstico pré-natal pode ser realizado pela ultra-sonografia a partir de 30 semanas de gestação^{7, 8, 23, 37, 38}.

O diagnóstico diferencial, nos casos de cistos mediastinais, é feito com todas as massas mediastinais (tumores, adenomegalias, tireóide ectópica)^{3, 14}. Nos cistos de localização intrapulmonar o diagnóstico diferencial é feito com pneumatoceles³, pneumotórax hipertensivo, bronquiectasias císticas, enfisema bolhoso, enfisema lobar congênito, abscesso pulmonar e seqüestro intrapulmonar¹⁴. No período pré-natal o diagnóstico diferencial, pela ultra-sonografia obstétrica, inclui cisto neuroentérico, cisto de duplicação esofágica, malformação adenomatóide cística do tipo 1 e hérnia diafragmática congênita^{8, 38}.

O tratamento definitivo para cisto broncogênico é a remoção cirúrgica completa do mesmo, sendo realizada lobectomia nos intrapulmonares^{3, 5, 6, 10-12, 14-17, 26-28, 40} e excisão completa do cisto nos localizados no mediastino^{2, 5, 6, 12, 15-17, 19, 22-24, 26, 27, 29, 40}, sendo a toracotomia ou a videotoroscopia as vias de acesso^{13, 15, 22, 23, 27, 41, 42}.

O diagnóstico é confirmado pela análise histológica, que mostra o cisto constituído por uma parede fina, que pode conter fragmentos de cartilagem, musculatura lisa e glândulas; internamente é revestido por epitélio cilíndrico ciliado^{2, 4-6, 10-12, 15-19, 24, 28, 44}.

O pós-operatório destas operações não costuma apresentar maiores problemas^{3, 5, 6, 10, 11, 16, 17, 19, 22-24, 26, 40}, nem mesmo nas crianças submetidas à lobectomia, onde o seguimento a longo prazo, mostrou provas de função pulmonar normal^{3, 43}, sem comprometimento da capacidade vital e capacidade respiratória máxima³.

Com a finalidade de chamar a atenção para esta enfermidade, que embora seja rara e com sintomas não específicos, pode trazer conseqüências graves aos seus portadores, este trabalho foi realizado, analisando e identificando os fatores relacionados a ela.

MÉTODOS

Este é um estudo clínico, com delineamento transversal e de coleta retrospectiva dos dados. Foram analisados os prontuários de 13 pacientes com diagnóstico de cisto broncogênico operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão (HIJG), em Florianópolis, estado de Santa Catarina, durante o período de 01 janeiro de 1980 e 31 de dezembro de 2002. Os dados foram coletados em prontuários fornecidos pelo

Serviço de Arquivos Médicos e Estatísticos (SAME) do HIJG e de uma pesquisa realizada anteriormente⁴⁵.

Utilizando-se uma ficha previamente elaborada (apêndice), foram coletados dados sobre: sexo, idade do diagnóstico, idade ao ser operado, procedência, diagnóstico pré-operatório, tipo de operação realizada, manifestações clínicas, exames complementares realizados, diagnóstico anátomo-patológico, complicações e ocorrência de óbito.

Quanto à idade, os pacientes foram distribuídos seguindo a classificação utilizada pelo Departamento de Pediatria da Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo (USP) proposta por Marcondes⁴⁶ (Quadro 1).

QUADRO 1 - Classificação da idade, segundo Marcondes⁴⁶.

Pré-natal		Primeiro ao terceiro trimestre de gestação
Neonatal		0 a 28 dias
Infância	Lactente	29 dias a 2 anos exclusive
	Pré-escolar	2 anos a 7 anos exclusive
	Escolar	7anos a 10 anos exclusive
Adolescente	Pré-puberal	10 anos a 12-14 anos
	Puberal	12-14 anos a 14-16 anos
	Pós-puberal	14-16 anos a 18-20 anos

Os pacientes das faixas etárias pré-puberal, puberal e pós-puberal foram considerados como um único grupo (adolescente).

Quanto à procedência, os pacientes foram distribuídos de acordo com os critérios do Instituto Brasileiro de Geografia e Estatística (IBGE)⁴⁷ em procedentes da mesorregião da grande Florianópolis (Águas Mornas, Antônio Carlos, Biguaçu, Florianópolis, Governador Celso Ramos, Palhoça, Santo Amaro da Imperatriz, São José e São Pedro de Alcântara) e de outras mesorregiões de Santa Catarina.

Quanto aos sintomas apresentados os pacientes foram distribuídos em 3 grupos: o primeiro os que apresentavam, ao diagnóstico, sintomas de insuficiência respiratória aguda (IRA), o segundo com história clínica de infecções respiratórias de repetição, o terceiro grupo os que foram diagnosticados por achado ocasional em exame de imagem.

Foi utilizado como definição para IRA, a súbita incapacidade do sistema respiratório em suprir demanda metabólica do organismo de oxigenação e eliminação de gás carbônico, que clinicamente apresenta-se com fadiga, sudorese, dispnéia, taquipnéia, apnéia, batimentos de asa de nariz, retração da parede torácica, taquicardia, irritabilidade e confusão mental, entre outros sinais e sintomas⁴⁸.

Foram considerados como apresentando infecções respiratórias de repetição aqueles pacientes que tiveram sinais e sintomas de pneumonia e a bronquite mais de uma vez durante a evolução da doença.

Foram considerados como achado ocasional aqueles casos em que o diagnóstico foi feito durante exame de imagem de rotina, incluindo ultra-sonografia obstétrica, ou durante investigação radiológica de outra enfermidade.

Quanto à localização dos cistos os pacientes foram distribuídos em os que apresentavam cistos intrapulmonares e mediastinais. Os intrapulmonares foram referidos conforme lobo afetado. Os mediastinais de acordo com a classificação de Maier²⁴ (Figura 1).

Quanto ao tipo de operação os pacientes foram distribuídos em ressecção do cisto e lobectomia e conforme a via de acesso.

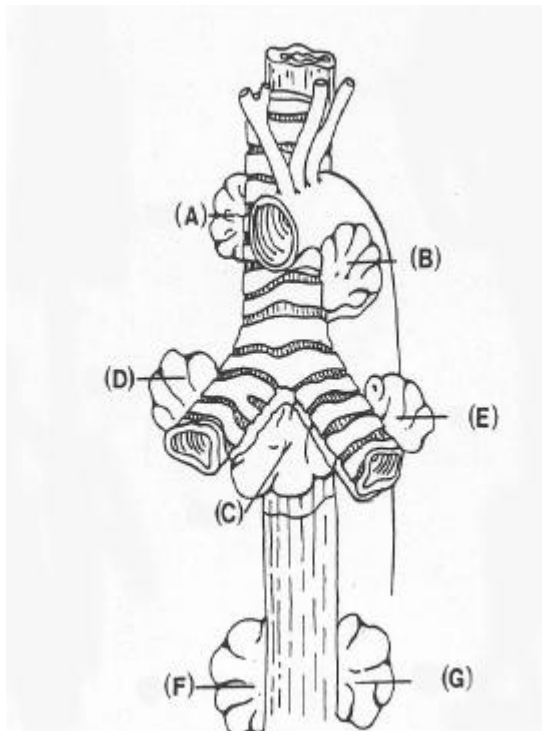


Figura 1 – Localização anatômica dos cistos broncogênicos mediastinais de acordo com a classificação de Maier²⁴. (A= paratraqueal direito; B= paratraqueal esquerdo; C= carinal; D= hilar direito; E= hilar esquerdo; F= paraesofágico direito; G= paraesofágico esquerdo)

RESULTADOS

TABELA 1 – Distribuição dos pacientes portadores de cisto broncogênico, operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002, segundo o sexo e a localização do cisto, em número (n) e percentual (%).

Sexo	Intrapulmonar		Mediastinal		Total	
	n	%	n	%	n	%
Masculino	2	33,33	4	66,67	6	46,15
Feminino	3	42,85	4	57,15	7	53,85
Total	5	38,46	8	61,54	13	100,00

FONTE: SAME-HIJG, 1980 – 2002

TABELA 2 – Distribuição dos pacientes portadores de cisto broncogênico, operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002, segundo a idade do diagnóstico e a localização do cisto, em número (n) e percentual (%).

Faixa Etária	Intrapulmonar		Mediastinal		Total	
	n	%	n	%	n	%
Pré-natal	0	0,00	1	100,00	1	7,70
Neonatal	1	100,00	0	0,00	1	7,70
Lactente	2	40,00	2	25,00	4	30,76
Pré-escolar	2	40,00	3	60,00	5	38,46
Escolar	0	0,00	2	100,00	2	15,38
Adolescente	0	0,00	0	0,00	0	0,00
Total	5	38,46	8	61,54	13	100,00

FONTE: SAME – HIJG, 1980 – 2002

Os pacientes incluídos na faixa etária de lactente apresentavam as seguintes idades: os com cistos intrapulmonares tinham 1 mês e 1 ano e 5 meses de vida, e os com cistos mediastinais tinham 5 meses e 7 meses de vida.

A idade média dos pacientes ao diagnóstico foi de 2 anos e 10 meses.

Com exceção dos pacientes com diagnóstico em idades pré-natal e neonatal, todos foram operados logo após o diagnóstico, sendo estes operados quando lactentes, com respectivamente 2 meses e 1 mês de vida.

TABELA 3 – Distribuição dos pacientes portadores de cisto broncogênico, operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002, segundo a procedência e a localização do cisto, em número (n) e percentual (%).

Procedência	Intrapulmonar		Mediastinal		Total	
	n	%	n	%	n	%
Grande Florianópolis	0	00,00	5	100,00	5	38,46
Outros	5	62,50	3	37,50	8	61,54
Total	5	38,46	8	61,54	13	100,00

FONTE: SAME – HIJG, 1980 – 2002

TABELA 4 – Distribuição dos pacientes portadores de cisto broncogênico intrapulmonar operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002, segundo a faixa etária e o sintoma apresentado, em número (n) e percentual (%).

Faixa etária	IRA*		Infecções de repetição		Achado ocasional		Total	
	n	%	n	%	n	%	n	%
Neonatal	1	100,00	0	0,00	0	0,00	1	20,00
Lactente	1	50,00	1	50,00	0	0,00	2	40,00
Pré-escolar	0	0,00	2	100,00	0	0,00	2	40,00
Escolar	0	0,00	0	0,00	0	0,00	0	0,00
Adolescente	0	0,00	0	0,00	0	0,00	0	0,00
Total	2	40,00	3	60,00	0	0,00	5	100,00

FONTE: SAME – HIJG, 1980 – 2002

* IRA: insuficiência respiratória aguda

Os pacientes incluídos na faixa etária de lactente, com sintomas de IRA e infecções respiratórias de repetição, tinham respectivamente, 30 dias e 1 ano e 5 meses de vida.

TABELA 5 – Distribuição dos pacientes portadores de cisto broncogênico mediastinal operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002, segundo a faixa etária e o sintoma apresentado, em número (n) e percentual (%).

Faixa etária	IRA*		Infecções de repetição		Achado ocasional		Total	
	n	%	n	%	n	%	n	%
Pré-natal	0	0,00	0	0,00	1	100,00	1	12,50
Neonatal	0	0,00	0	0,00	0	0,00	0	00,00
Lactente	0	0,00	2	100,00	0	0,00	2	25,00
Pré-escolar	0	0,00	1	33,33	2	66,67	3	37,50
Escolar	0	0,00	1	50,00	1	50,00	2	25,00
Adolescente	0	0,00	0	0,00	0	0,00	0	0,00
Total	0	00,00	4	50,00	4	50,00	8	100,00

FONTE: SAME – HIJG, 1980 – 2002

* IRA: insuficiência respiratória aguda

Os pacientes incluídos na faixa etária lactente tinham 5 meses e 7 meses de vida.

O diagnóstico pré-natal foi realizado no 3º trimestre de gestação.

TABELA 6 – Distribuição dos pacientes portadores de cisto broncogênico intrapulmonar, operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002, segundo a localização, em número (n) e percentual (%).

Localização	n	%
Lobo superior direito	3	60,00
Lobo superior esquerdo	2	40,00
Total	5	100,00

FONTE: SAME- HIJG, 1980-2002

TABELA 7 – Distribuição dos pacientes portadores de cisto broncogênico mediastinal, operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002, segundo a localização, em número (n) e percentual (%).

Localização do cisto	n	%
Carinal	2	25,00
Hilar	0	0,00
Paraesofágico	3	37,50
Paratraqueal	3	37,50

Total	8	100.00
-------	---	--------

FONTE: SAME- HIJG, 1980-2002

TABELA 8 – Distribuição dos pacientes portadores de cisto broncogênico, operados no Hospital Infantil Joana de Gusmão no período de 01 de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2002, segundo o exame complementar realizado e a localização do cisto, em número (n) e percentual (%).

Exame Complementar	Intrapulmonar		Mediastinal	
	n	%	n	%
Radiografia de tórax	5	100,00	8	100,00
TC* de tórax	2	40,00	3	37,50
Ultra-sonografia	0	0,00	4	50,00
SEGD**	0	0,00	3	37,50
USG *** obstétrica	0	0,00	1	12,50

FONTE: SAME – HIJG, 1980 – 2002

* TC: tomografia computadorizada

** SEG:D: seriografia esôfago-gastro-duodenal

*** USG: ultra-sonografia

Todos os pacientes portadores de cistos broncogênicos intrapulmonares foram submetidos à lobectomia do lobo acometido.

Sete dos pacientes portadores de cistos broncogênicos mediastinais foram submetidos à ressecção do cisto através de toracotomia e um paciente através de cervicotomia.

Complicações pós-operatórias foram encontradas em 2 (16,66%) pacientes. Um apresentou pneumonia e outro derrame pleural, com boa evolução clínica em ambos os casos. Não houve óbitos.

A anatomia patológica confirmou o diagnóstico de cisto broncogênico nos 13 (100%) pacientes.

DISCUSSÃO

O cisto broncogênico (CB) é uma anomalia congênita originária do segmento ventral do intestino primitivo anterior ¹⁻¹⁷, resultante de uma divisão anormal da árvore traqueobrônquica durante as primeiras 16 semanas de gestação ¹⁸. Sua incidência é baixa variando entre 1:42000 ²⁹ e 1:68000 ⁴⁹ admissões hospitalares. Entretanto é o cisto intratorácico originário do intestino anterior mais comum (71%) ^{20, 23}. Na literatura pesquisada, tem sido descrita uma predominância do sexo masculino em relação ao feminino, de 1: 0,76 ¹⁹. Neste estudo houve um predomínio discreto do sexo feminino (53,85%) em relação ao sexo masculino (46,15%) (Tabela 1).

Quanto à idade média em que é realizado o diagnóstico de CB em crianças, há diferenças significativas entre a literatura pesquisada. Lorenzo *et al.* ⁵ relataram uma média de 6 anos e 4 meses de idade ao diagnóstico, assim como DuMontier *et al.* ¹⁴ que descreveram uma média de 5 anos. Já, Ramenofsky *et al.* ³⁰ e Michel *et al.* ²³ referiram uma média de 2 anos e 3 meses, o que se aproxima com essa casuística, que encontrou uma idade média ao diagnóstico de 2 anos e 10 meses. No momento da cirurgia, na literatura pesquisada, o percentual de crianças operadas abaixo de

um ano de idade variou de 15%⁵ a 47%²⁵. Nesse estudo encontrou-se 38,46% das crianças operadas com menos de 1 ano de idade, corroborando o referido pelos autores^{5, 25} (Tabela 2).

Quanto à procedência todos os pacientes com cisto broncogênico intrapulmonar (CBIP) eram provenientes de outras mesorregiões do estado. Este fato pode ser explicado pela raridade desta malformação e a necessidade de um serviço com infraestrutura hospitalar para o tratamento especializado⁵⁰ (Tabela 3).

Evrard *et al.*¹⁸ referiram que os sintomas ocorrem mais precocemente nos cistos intrapulmonares que nos mediastinais e Lazar *et al.*²⁵ relataram que esses sintomas tendem a ser mais graves nas crianças menores. Nesse estudo, 60% das crianças com CBIP eram menores de 2 anos de idade, e destas 66,6% apresentaram insuficiência respiratória aguda (IRA), corroborando o fato de que crianças menores tendem a apresentar-se com sintomatologia mais exuberante (Tabela 4). Quanto aos cistos mediastinais 62,5% eram maiores de 2 anos, e nenhuma criança com cisto broncogênico mediastinal (CBM), apresentou IRA (Tabela 5).

A maioria dos autores^{5, 6, 9-12, 16-20, 23, 25-30, 36, 39} relataram uma predominância de pacientes sintomáticos no momento da operação. Martinod *et al.*²², Coran *et al.*⁴⁰ e Cuypers *et al.*¹⁵ encontraram uma maior prevalência de pacientes assintomáticos, diagnosticados ao acaso, durante exame de imagem, com a diferença entre eles, que os dois primeiros descreveram apenas pacientes com cistos localizados no mediastino e o terceiro relatou pacientes tanto com cistos mediastinais quanto intrapulmonares.

Os sintomas apresentados variam conforme a idade e a localização do cisto. Em crianças menores de um ano, independente da localização do cisto, os sintomas de IRA, como por exemplo, dispnéia e cianose, são predominantes, como descreveram vários autores^{5, 9, 10, 18, 20, 25-28, 30, 36, 39}. Em crianças maiores de um ano de idade, os autores relataram diferenças entre os sintomas conforme a localização do cisto. Nos cistos mediastinais, os sintomas compressivos foram mais freqüentes, como, por exemplo, dor torácica, tosse e disfagia^{5, 12, 14, 16, 17, 19, 20, 22, 24, 25, 29, 30}. Nos cistos localizados no parênquima pulmonar, infecção respiratória foi o sintoma mais comum^{5, 6, 10-12, 16-19, 23, 25-27, 29}. Nessa pesquisa todos os pacientes que apresentaram IRA tinham menos de um ano de idade, concordando com os achados da literatura pesquisada (Tabela 4).

Em relação aos sintomas conforme a localização dos cistos, nos casos dos intrapulmonares houve concordância com a literatura pesquisada, onde as infecções respiratórias de repetição foram o sintoma mais prevalente (60%), e todas as crianças eram maiores de um ano de idade (Tabela 4).

Nos cistos mediastinais houve uma incidência semelhante entre pacientes sintomáticos e assintomáticos (50%). Em pacientes menores de um ano houve predomínio de pacientes sintomáticos (66,67%), que apresentaram ao diagnóstico, história clínica de infecções respiratórias de repetição, discordando da literatura pesquisada. Nessa pesquisa não foram encontrados sintomas compressivos nos cistos localizados no mediastino, sugerindo dessa maneira que CBM, nesse trabalho, eram de pequeno volume (Tabela 5).

Georges *et al.*¹² relataram em uma casuística com 86 casos de CB, uma incidência três vezes maior de cistos mediastinais. Nesse estudo também houve um predomínio dos cistos mediastinais (61,5%), em concordância com outros autores^{5, 26}.

Quanto a localização dos cistos, os intrapulmonares, segundo alguns autores ^{5, 8, 10-12, 28}, acometem principalmente os lobos inferiores, sem predileção por lado direito ou esquerdo, entretanto outros autores relataram acometimento mais comum do pulmão direito ^{6, 25, 30}. Nessa casuística houve acometimento somente de lobos superiores, com maior incidência no lado direito (Tabela 6). Esse fato poderia ser relacionado ao pequeno número de casos estudados.

Quanto aos cistos mediastinais, classificados conforme Maier ²⁴, Ribet *et al.* ¹⁹ e Georges *et al.* ¹² relataram uma maior incidência de cistos paraesofágicos, DuMontier *et al.* ¹⁴ descreveram uma maior incidência de cistos carinais e hilares, enquanto Suen *et al.* ¹⁶ encontraram uma maior incidência de cistos carinais e paratraqueais. Nessa pesquisa encontrou-se uma incidência maior de cistos paraesofágicos e paratraqueais, não se encontrando nenhum cisto de localização hilar (Tabela 7).

Quanto ao exame complementar, após a suspeita clínica, existe um consenso entre os autores pesquisados ^{3-6, 10-12, 14, 16, 19, 26, 28, 30, 36, 37}, que a radiografia simples de tórax é o exame de maior utilidade para o diagnóstico de CB. Entretanto, o uso seletivo de um estudo adicional de imagem, pode ser útil para a realização de diagnósticos diferenciais e um planejamento cirúrgico adequado ²⁸. A tomografia computadorizada é muito útil para a visibilização de cistos pequenos ou invisíveis à radiografia comum ². Ela é de grande utilidade também para mostrar a relação do cisto broncogênico com outras estruturas mediastinais ¹⁶, além de diferenciar estruturas císticas de sólidas, evitando que algum tumor sólido, seja confundido com um cisto ^{19, 28}. A ressonância nuclear magnética e a ultra-sonografia são outros exames, que em casos selecionados são úteis ao diagnóstico ^{10, 16, 28}. Nessa casuística, todos os pacientes realizaram radiografia de tórax, sendo que 9 pacientes realizaram adicionalmente tomografia computadorizada ou ultra-sonografia de tórax. Os três pacientes submetidos a seriografia esôfago-gastro-duodenal (SEGD), estavam investigando refluxo gastro-esofágico, e tiveram o diagnóstico de CB ao acaso, corroborando o fato de muitos CBM assintomáticos serem diagnosticados incidentalmente em exames de imagem ¹⁵ (Tabela 8).

Com os avanços, nos últimos anos, da medicina fetal, o diagnóstico pré-natal, das malformações pulmonares císticas, pela ultra-sonografia obstétrica, tem aumentado significativamente ^{8, 23, 37, 38}. Avni *et al.* ³⁸ foram os primeiros a descrever, em 1986, um caso de CB diagnosticado em um feto de 30 semanas de gestação. Em apenas um caso dessa pesquisa foi realizado diagnóstico pré-natal (Tabela 8). Este fato pode ser justificado pelo difícil acesso da maioria das gestantes aos serviços de medicina fetal.

Quanto ao tratamento, independente do cisto ser intrapulmonar ou mediastinal, a ressecção cirúrgica das lesões, é o melhor tratamento ^{4, 5, 30}. O alto índice de complicações ¹², a persistência dos sintomas ^{5, 38}, a não regressão espontânea do cisto e o risco de malignização ^{13, 14, 16}, são alguns dos fatores que justificam esta escolha terapêutica ²⁰. Em cistos intrapulmonares, vários autores ^{3, 5, 6, 10-12, 15-17, 26-28, 40} apontam a lobectomia como a melhor escolha, porque comumente os cistos estão envolvidos por áreas com atelectasia e pneumonia. Em cistos pequenos, segmentectomia eventualmente pode ser realizada ¹¹. Entretanto em crianças menores de 2 anos, a lobectomia é o tratamento de escolha, porque o tecido pulmonar restante irá crescer e expandir, enquanto a segmentectomia apresenta

maiores riscos de infecção lobar, mesmo em cistos pequenos ¹⁸. Nessa casuística, em todos os casos de cistos intrapulmonares foi realizada lobectomia.

Em cistos mediastinais, vários autores ^{2, 5, 6, 12, 15-17, 19, 22-24, 26, 27, 29, 40} sugerem a excisão completa do cisto, como o tratamento de escolha, sendo a via de acesso, a de maior facilidade e segurança. Michel *et al.* ²³ ressaltaram que a toracoscopia pode ser difícil ou perigosa em alguns casos, como já havia sido relatado anteriormente por Ribet *et al.* ¹⁹. Eles sugerem que em cistos mediastinais profundos, cistos infectados, cistos localizados na parede esofágica e nos casos de distensão pulmonar causada por compressão dos brônquios pelo cisto, seja realizada a toracotomia. Nesse estudo em cistos mediastinais, a excisão foi realizada em sete pacientes utilizando a toracotomia como via de acesso, e em um paciente a cervicotomia, pelo o acesso ser mais fácil, no caso. Em nenhum paciente foi realizada toracoscopia.

Complicações cirúrgicas são raras em todos os tipos de operações, e quando presentes são mínimas, com boa resposta ao tratamento conservador ²⁶. Nessa casuística foram encontrados dois casos com complicações pós-operatórias, ambos com boa evolução clínica, não ocorrendo óbitos.

Espera-se que este trabalho tenha atingindo o objetivo de alertar para as manifestações clínicas dos CB, mediastinais e intrapulmonares, permitindo assim o diagnóstico e tratamento precoces, evitando complicações para estes pacientes.

REFERÊNCIAS

1. Moore ML, Persaud TVN. O sistema respiratório. In: Moore ML, editor. Embriologia Clínica. 5ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan; 1994. p.214-23.
2. Maksoud JG. Massas mediastinais. In: Maksoud JG, editor. Cirurgia Pediátrica. 1ed. Rio de Janeiro: Revinter; p.491-2.
3. Maksoud JG. Lesões congênitas do pulmão. In: Maksoud JG, editor. Cirurgia Pediátrica. 1ed. Rio de Janeiro: Revinter; p.565-8.
4. Kravitz RM. Congenital malformations of the lung. *Pediatr Clin North Am* 1994;41(3):453-72.
5. Di Lorenzo M, Collin PP, Vaillancourt R, Duranceau A. Bronchogenic cysts. *J Pediatr Surg* 1989;24(10):988-91.
6. Saad Junior R, D'Andretta Neto C, Ethel Filho J, Ponzoni ME, Scheinman M, Kanarek D. [Clinical and therapeutic aspects of bronchogenic cysts. Report of 11 cases]. *AMB Rev Assoc Med Bras* 1987;33(1-2):21-4.
7. Buckner CB, Walker CW, Shah HR, Fitzrandolph RL. Bronchogenic cysts. *Am Fam Physician* 1989;40(4):167-72.
8. Williams HJ, Johnson KJ. Imaging of congenital cystic lung lesions. *Paediatr Respir Rev* 2002;3(2):120-7.
9. Okur H, Kucukaydin M, Ozturk A, Balkanli S, Bozkurt A. Giant bronchogenic cyst presenting as a lobar emphysema in a newborn. *Ann Thorac Surg* 1996;62(1):276-8.

10. Takeda S, Miyoshi S, Inoue M, Omori K, Okumura M, Yoon HE, et al. Clinical spectrum of congenital cystic disease of the lung in children. *Eur J Cardiothorac Surg* 1999;15(1):11-7.
11. Ribet ME, Copin MC, Gosselin BH. Bronchogenic cysts of the lung. *Ann Thorac Surg* 1996;61(6):1636-40.
12. St-Georges R, Deslauriers J, Duranceau A, Vaillancourt R, Deschamps C, Beauchamp G, et al. Clinical spectrum of bronchogenic cysts of the mediastinum and lung in the adult. *Ann Thorac Surg* 1991;52(1):6-13.
13. Bolton JW, Shahian DM. Asymptomatic bronchogenic cysts: what is the best management? *Ann Thorac Surg* 1992;53(6):1134-7.
14. St-Georges R, Deslauriers J, Duranceau A, Vaillancourt R, Deschamps C, Beauchamp G, et al. Clinical spectrum of bronchogenic cysts of the mediastinum and lung in the adult. *Ann Thorac Surg* 1991;52(1):6-13.
15. Cuypers P, De Leyn P, Cappelle L, Verougstraete L, Demedts M, Deneffe G. Bronchogenic cysts: a review of 20 cases. *Eur J Cardiothorac Surg* 1996; 10(6): 393-6.
16. Suen HC, Mathisen DJ, Grillo HC, LeBlanc J, McLoud TC, Moncure AC, et al. Surgical management and radiological characteristics of bronchogenic cysts. *Ann Thorac Surg* 1993;55(2):476-81.
17. Cartmill JA, Hughes CF. Bronchogenic cysts: a persistent dilemma. *Aust N Z J Surg* 1989;59(3):253-6.
18. Evrard V, Ceulemans J, Coosemans W, De Baere T, De Leyn P, Deneffe G, et al. Congenital parenchymatous malformations of the lung. *World J Surg* 1999;23(11):1123-32.
19. Ribet ME, Copin MC, Gosselin B. Bronchogenic cysts of the mediastinum. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1995;109(5):1003-10.
20. Ahrens B, Wit J, Schmitt M, Wahn U, Niggemann B, Paul K. Symptomatic bronchogenic cyst in a six-month-old infant: case report and review of the literature. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2001;122(5):1021-3.
21. Wychulis AR, Payne WS, Clagett OT, Woolner LB. Surgical treatment of mediastinal tumors: a 40 year experience. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1971;62(3):379-92.
22. Martinod E, Pons F, Azorin J, Mouroux J, Dahan M, Faillon JM, et al. Thoracoscopic excision of mediastinal bronchogenic cysts: results in 20 cases. *Ann Thorac Surg* 2000;69(5):1525-8.
23. Michel JL, Revillon Y, Montupet P, Sauvat F, Sarnacki S, Sayegh N, et al. Thoracoscopic treatment of mediastinal cysts in children. *J Pediatr Surg* 1998;33(12):1745-8.
24. Maier HC. Bronchogenic cysts of the mediastinum. *Ann Surg* 1948; 127(8): 476-502.
25. Lazar RH, Younis RT, Bassila MN. Bronchogenic cysts: a cause of stridor in the neonate. *Am J Otolaryngol* 1991;12(2):117-21.

26. Al-Bassam A, Al-Rabeeah A, Al-Nassar S, Al-Mobaireek K, Al-Rawaf A, Banjer H, et al. Congenital cystic disease of the lung in infants and children (experience with 57 cases). *Eur J Pediatr Surg* 1999;9(6):364-8.
27. Rodgers BM, Harman PK, Johnson AM. Bronchopulmonary foregut malformations. The spectrum of anomalies. *Ann Surg* 1986;203(5):517-24.
28. Wesley JR, Heidelberger KP, DiPietro MA, Cho KJ, Coran AG. Diagnosis and management of congenital cystic disease of the lung in children. *J Pediatr Surg* 1986;21(3):202-7.
29. Coselli MP, de Ipolyi P, Bloss RS, Diaz RF, Fitzgerald JB. Bronchogenic cysts above and below the diaphragm: report of eight cases. *Ann Thorac Surg* 1987;44(5):491-4.
30. Ramenofsky ML, Leape LL, McCauley RG. Bronchogenic cyst. *J Pediatr Surg* 1979;14(3):219-24.
31. Kitano Y, Iwanaka T, Tsuchida Y, Oka T. Esophageal duplication cyst associated with pulmonary cystic malformations. *J Pediatr Surg* 1995;30(12):1724-7.
32. Yasufuku M, Hatakeyama T, Maeda K, Yamamoto T, Iwai Y. Bronchopulmonary foregut malformation: A large bronchogenic cyst communicating with an esophageal duplication cyst. *J Pediatr Surg* 2003;38(2):E2.
33. Black TL, Fernandes ET, Wrenn EL, Jr., Magill HL. Extralobar pulmonary sequestration and mediastinal bronchogenic cyst. *J Pediatr Surg* 1988;23(11):999-1001.
34. Krous HF, Sexauer CL. Embryonal rhabdomyosarcoma arising within a congenital bronchogenic cyst in a child. *J Pediatr Surg* 1981;16(4):506-8.
35. Endo C, Imai T, Nakagawa H, Ebina A, Kaimori M. Bronchioloalveolar carcinoma arising in a bronchogenic cyst. *Ann Thorac Surg* 2000;69(3):933-5.
36. Schwartz MZ, Ramachandran P. Congenital malformations of the lung and mediastinum: A quarter century of experience from a single institution. *J Pediatr Surg* 1997;32(1):44-7.
37. Winters WD, Effmann EL. Congenital masses of the lung: prenatal and postnatal imaging evaluation. *J Thorac Imaging* 2001;16(4):196-206.
38. Avni EF, Vanderelst A, Van Gansbeke D, Schils J, Rodesch F. Antenatal diagnosis of pulmonary tumours: report of two cases. *Pediatr Radiol* 1986;16(3):190-2.
39. Papagiannopoulos K, Hughes S, Nicholson AG, Goldstraw P. Cystic lung lesions in the pediatric and adult population: Surgical experience at the Brompton Hospital. *Ann Thorac Surg* 2002; 73(5):1594-8.
40. Coran AG, Drongowski R. Congenital cystic disease of the tracheobronchial tree in infants and children. Experience with 44 consecutive cases. *Arch Surg* 1994;129(5):521-7.

41. Sugarbaker DJ. Thoracoscopy in the management of anterior mediastinal masses. *Ann Thorac Surg* 1993;56(3):653-6.
42. Hazelrigg ST, Landreneau RJ, Mack MJ, Acuff TE. Thoracoscopic resection of mediastinal cysts. *Ann Thorac Surg* 1993;56(3):659-60.
43. Verga G, Minniti S, Donati P, Spina P, Verga L. Valutazione a distanza della funzionalità respiratoria in individui sottoposti a lobectomia polmonare in età pediatrica. *Minerva Pediatr* 1995;47(1-2):7-12.
44. 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.
45. Noveletto ST, Coelho L. Cisto broncogênico na criança [Trabalho de conclusão de curso]. Florianópolis:Universidade de Santa Catarina;1992.
46. Marcondes E, Machado DUM, Setran N, Carrazza FR. Crescimento e desenvolvimento. In: Marcondes E, editor. *Pediatria Básica*. 8 ed. São Paulo: Sarvier;1991. p. 37-63.
47. Divisão territorial com indicação das mesorregiões geográficas e municípios de Santa Catarina. In: *Divisão de Pesquisa do Estado de Santa Catarina*; IBGE:1997.
48. Marcondes E. Insuficiência respiratória aguda. In: Marcondes E, editor. *Pediatria Básica*. 8ed. São Paulo: Sarvier; 1991. p.892-6.
49. Sabiston DC, Scott HW. Primary neoplasms and cysts of the mediastinum. *Ann Surg* 1952;136:777.
50. McCullagh M, MacConnachie I, Garvie D, Dykes E. Accuracy of prenatal diagnosis of congenital cystic adenomatoid malformation. *Arch Dis Child* 1994;71(2):F111-3.