

Quiste broncogénico en la nasofaringe. Reporte de un caso y revisión bibliográfica

Enrique Guzmán Rivera,* Oscar García Murray,** Javier Hernández Covarrubias***

RESUMEN

Se describe un caso de una niña de 4 años en la que incidentalmente se le descubre un pequeño tumor en la nasofaringe que al ser extirpado se identificó como quiste broncogénico. Este hallazgo motivó a los autores a hacer una revisión de la literatura acerca de este problema.

Palabras clave: Quiste broncogénico, tumores nasofaríngeos.

SUMMARY

A case of a 4 years old girl with a cystic tumor located in the wall lateral left of nasopharynge is reported. The mass was removed and the histological diagnosis was done: bronchogenic cyst. This finding motivated to review the literature in regard to this problem.

Key words: Bronchogenic cyst, nasopharyngeal tumors.

Se presenta el caso de una niña llevada a consulta médica por presentar manifestaciones clínicas relacionadas con un episodio de diarrea, en la que se descubre la presencia de una tumoración en la nasofaringe, que resultó ser un quiste broncogénico.

CASO CLÍNICO

Niña de 4 años de edad, con manifestaciones clínicas de: vómitos, diarrea y dolor abdominal; por presentar una gastroenteritis de etiología infecciosa. Durante el examen físico se descubre en la cavidad oral, entre el velo del paladar y la faringe, (fija a la pared lateral derecha) una masa de aspecto polipoide de 2.5 cm de diámetro; era de color amarillo-verdoso, blanda, no dolorosa, y que con el abatelenguas era movilizaba discretamente (*Figura 1*).

Este hallazgo fue un descubrimiento para la niña y para los familiares; hasta ese momento no ocasionaba dificultad respiratoria, ni alteración del mecanismo de la deglución así como ninguna otra molestia. Se atiende y

controla el cuadro gastrointestinal, con medidas convencionales, y se dio inicio a estudio de la masa quística. La TAC de la nariz y los senos paranasales no informó ninguna otra neoformación, aunque evidenció un aumento importante del volumen de la pared posterosuperior de la rinofaringe, de bordes regulares y bien definidos. Era de tejido adenoideo y ocluía en forma casi total la columna aérea. En la segunda revisión clínica se visualizó que la masa quística había aumentado de tamaño a 3.0 cm y había cambiado de color a rojo-violáceo, la niña continuó asintomática.

Previo a exámenes de laboratorios (biometría hemática, grupo sanguíneo y Rh (0 +), examen general de orina y coagulograma completo), que resultaron dentro de límites normales, se decidió someterla a cirugía; los diagnósticos preoperatorios fueron: de pólipo retrorinal e hipertrofia de adenoides. Bajo anestesia general se efectuó la adenoidectomía, se procedió a disecar la masa quística y se procedió a puncionar y a aspirar con jeringa, se obtuvo aproximadamente 1.5 a 2.0 mL de material mucoso sanguinolento; se efectuó la escisión de la bolsa quística en forma total, sin accidentes ni incidentes, reparando la faringe con colgajo centro-lateral de la mucosa. El espécimen quirúrgico fue enviado para estudio histopatológico, que informó: Dos piezas quirúrgicas, una de ellas ovoide, mide 1.5 x 1.2 x 0.7 cm y está constituida por tejido de color café rojizo y consistencia blanda. La otra pieza es irregular, alargada, mide 2.6 x 0.7 x 0.4 cm y muestra la superficie externa de color rojo

* Pediatra. Adscrito Quero Fisiológico Servicio Neonatología Hospital Sta Fe. Asociación Médica de Hospital Infantil Privado.

** Cirujano Pediatra. Asociación Médica Hospital Infantil Privado. Hospital Angeles del Pedregal.

*** Otorrinolaringólogo Clínica Médica Polanco.



Figura 1. Aumento de volumen de la pared posterior y superior de la rinofaringe.

amarillento. Al corte amarillo claro y consistencia blanda que se incluyen en su totalidad. Descripción microscópica: Estructura quística de retrofaringe que está revestida por epitelio de tipo respiratorio con células cilíndricas pseudoestratificadas y ciliadas sin evidencia de malignidad en el material examinado.

Diagnóstico de patología: Quiste broncogénico (QB) nasofaríngeo.

Posterior a este informe, y a la recuperación de la paciente, se solicitó una serie esófago-gastro-duodenal, con el propósito de descartar otras malformaciones asociadas al esófago,^{1,2} y aunque usualmente se considera que la duplicación esofágica y el QB son malformaciones del tubo primitivo embrionario, diferentes, ambas ocurren y se originan durante el mismo evento de embriogénesis por lo que su coexistencia debe buscarse.³ No encontrando ninguna otra patología por lo que se dio de alta a la paciente. Actualmente se encuentra en excelentes condiciones físicas generales.

DISCUSIÓN

Al revisar la literatura con respecto al QB se encontró que se trata de una malformación rara, sobre todo en la cavidad bucal: se hallaron 2 casos, uno con el tumor localizado en la faringe y el otro coexistiendo con paladar hendi-

do.^{4,5} Estos dos reportes refieren 271 casos de QB; en ellos el género no parece ser un factor determinante en su presentación; se describe desde los primeros días de vida hasta la vida adulta, entre los 60 y 70 años de edad, pero es más frecuentemente informado en niños y jóvenes.

El QB es una malformación debida a un brote proveniente del extremo cefálico ventral del tubo embrionario, que da origen a la formación de los aparatos digestivo y respiratorio durante la embriogénesis; aproximadamente durante las semanas 10-12 de la gestación, cuando se divide el tubo primitivo, en esófago y laringe-traquea.^{6,7} La presencia del QB es con mayor frecuencia intratorácico, probablemente debido a su etiopatogenia y por esta misma razón tal vez resulta infrecuente que se localice en otras áreas (*Cuadro 1*). La piel es el tejido fuera de cavidad torácica con mayor índice de implantación: Zvulunov y sus col,⁸ informan un caso en un niña de 4 años de edad, en la piel y en la revisión que hacen consignan 50 casos más. Hay descripciones de QB en la piel que se asemejan una hendidura supraesternal, y la localización más común es el área preesternal cuello y escápula,⁸ otros cinco autores más describen quistes en la piel de niños,⁹⁻¹¹ y en la de un adolescente.¹²

En el abdomen, cavidad señalada por diversos autores como asiento de QB, sobresale la localización retroperitoneal¹³⁻¹⁵ o bien colindando o incluyéndose en las fibras musculares del diafragma.¹⁶⁻¹⁹ Cuando la heterotopia del tejido es a mayor distancia, su incidencia se torna excepcional: en lengua hay dos casos^{20,21} y en la médula espinal uno.²²

El tórax es el sitio en que su presencia es mayor, predominando el mediastino sobre la localización intrapul-

Cuadro 1. Localización del quiste broncogénico, según revisión hecha en la literatura+.

Lugar	Localización	Casos (n)
Tórax	Mediastino	142
	Pulmón y bronquios	101
Abdomen	Retroperitoneal y diafragmáticos	11
	Intraabdominal	1
Otras	Piel*	8
	Faringe	2
	Lingual	2
	Médula espinal	1
Total		268

+ Las fuentes consultadas aparecen en las referencias.

* Un autor revisa e informa 50 casos de QB en la piel,⁸ pero no fueron revisados por lo que no están contabilizados en este informe.

monar o bronquial. Algunos autores,^{23,24} con grandes series, el primero con 69 casos (adultos y niños) y el segundo con 15 casos, todos en niños, así lo señalan. También en el mediastino, pero específicamente implantado en el esófago el QB se ha encontrado en forma solitaria o asociado a otra anomalía, como es la duplicación esofágica, así se informa de 10 casos.²⁵⁻²⁸ Hay casos aislados de implantaciones inusuales como en: el pericardio, el septum atrial, las arterias aorta y pulmonar.²⁹⁻³¹ En tórax, pero fuera de mediastino, afectando el parénquima pulmonar y las paredes o luz del árbol bronquial se han descrito 41 casos y Aktogis, Takeda, Coran y Mendes informan 20, 13, 6 y 4 casos respectivamente.³²⁻³⁶

También se han observado asociaciones de QB con otras malformaciones broncopulmonares, como la atresia y las estenosis bronquiales^{37,38} y secuestro pulmonar³⁹ o actuando como cuerpo extraño intraluminalmente en la traquea y los bronquios.^{40,41}

Cuadro clínico: Las formas silenciosas asintomáticas y el descubrimiento casual del quiste son incidentes que ordinariamente llevan al diagnóstico. La sintomatología es inespecífica y depende en gran medida de la ubicación, el tamaño, y las estructuras con las que el quiste está en relación, sea por la implantación y/o de compresión, o si el contenido del quiste permanece estéril o se infecta.⁴² Por ser este tumor predominantemente intratorácico se manifiesta frecuentemente con síntomas respiratorios, como tos, disfonía, estridor, disnea, infecciones respiratorias recurrentes, hemoptisis, o bien manifestaciones clínicas compatibles con bronquiolitis, derrame pleural y neumotórax⁴³⁻⁴⁶ aunque tiene también expresiones clínicas inesperadas, como cefalea intratable, dolor abdominal, o infarto al miocardio.⁴⁷

Diagnóstico: El diagnóstico se establece solamente con la identificación histopatológica de: presencia de epitelio ciliado, pseudoestratificado, columnar o cuboidal, glándulas de secreción mucosa, fibras musculares y ocasionalmente cartilago, con lo cual se hace el diagnóstico definitivo.

La sospecha clínica es difícil y generalmente no es de primera intención; habitualmente se descubre incidentalmente por investigación clínica a que dan lugar los síntomas que presenta el paciente. Cuando el QB se encuentra en la cavidad torácica o en la abdominal, su hallazgo se hace por medio de estudios de gabinete: rayos X, tomografía o resonancia magnética, que muestran una imagen translúcida, sugestiva de un quiste. Si esta imagen está en el mediastino o en el parénquima pulmonar, deberá considerarse al QB el diagnóstico diferencial.

Tratamiento: Es siempre quirúrgico siendo necesaria la escisión del quiste aún en localizaciones de bajo riesgo, pues se desconoce el comportamiento que tendrá.

Con frecuencia se observa una correlación entre: dificultad técnica quirúrgica y grandes manifestaciones clínicas.

Pronóstico: El pronóstico es bueno para la vida y la función; el quiste es una formación benigna que al ser retirado permite la recuperación total del paciente. Las complicaciones son raras y con frecuencia son secundarias a complicaciones pre o posquirúrgicas. Las muertes debidas al QB son excepcionales.

Cabe pues concluir que el QB es una entidad rara, el diagnóstico clínico es frecuentemente casual y su confirmación es necesariamente histopatológica. El presente caso, es singular por su situación en la nasofaringe, lo que permitió su descubrimiento temprano y su oportuna, y sencilla extirpación. Los puntos coincidentes entre este caso y los publicados por otros autores son: su presencia en un niño y su carácter asintomático y benigno. Su localización en la cavidad bucal tiene como antecedente sólo dos casos por lo que su hallazgo es inusual.

BIBLIOGRAFÍA

1. Horwitz JR. Bronchogenic and esophageal duplication cyst in a single mediastinal mass in a child. *Pediatr Pathol Lab Med* 1996; 16: 113-8.
2. Kitano Y, Iwanaka T, Tsuchida Y, Oka T. Esophageal duplication cyst associated with pulmonary cystic malformations. *J Pediatric Surg* 1995; 30: 1724-7.
3. Nobuhara KK, Gorski YC, La Quaglia MP, Shamberger RC. Bronchogenic cysts and esophageal duplications: common origins and treatment. *J Pediatr Surg* 1997; 32: 1408-13.
4. Takimoto T, Akemoto Y, Umeda R. Pharyngeal cyst arising from second branchial cleft. *J Laryngol Otol* 1989; 103: 964-5.
5. Trauner R. On branchiogenous cysts and submucous cleft palate. *Wien Klin Wochenschr* 1968; 80: 242-4.
6. Kravitz RM. Congenital malformations of the lung. *Pediatr Clin North Am* 1994; 41: 453-72.
7. Moore KL. Before we are born: W. B. Saunders Co. 1a. ed. The respiratory system 1989; 126.
8. Zvulunov A, Amichai B, Grumal MH, Avinoach I, Halevy S. Cutaneous bronchogenic cyst. *Pediatr Dermatol* 1998; 15: 277-81.
9. Jona JZ. Extramediastinal bronchogenic cysts in children. *Pediatr Dermatol* 1995; 12: 304-6.
10. Treseer NJ, Dahms B, Bemer JJ. Cutaneous bronchogenic cyst of the back. *Pediatr Pathol* 1994; 14: 207-12.
11. Singer G, Haag E, Anabitar M. Cutaneous lung tissue heterotopia. *Histopathology* 1998; 32: 60-2.
12. Kural YB, Ergun S, Buyukbabani N, Durmusoglu R, Onsun N. Cutaneous bronchogenic cysts. *Int J Dermatol* 1998; 37: 137-40.
13. Cetinkursun S, Ozturk H, Celasun B, Sakarya MT, Surer I. Isolate abdominal bronchogenic cyst. *Eur J Pediatr Surg* 1997; 7: 103-5.
14. Menke H, Roher HD, Gabbert H, Schweden F. Bronchogenic cyst: a rare cause of a retroperitoneal mass. *Eur J Surg* 1997; 163: 311-4.
15. Itoh H, Shitamura T, Kataoka H, Ide H, Akiyama Y et al. Retroperitoneal bronchogenic cyst: report of a case and literature review. *Pathol Int* 1999; 49: 152-5.
16. Fischbach R, Benz-Bohm G, Berthold F, Eidt S, Schmidt R. Infradiaphragmatic bronchogenic cyst with high CT numbers in a boy with primitive neuroectodermal tumor. *Pediatr Radiol* 1994; 24: 504-5.

17. Hoang C, Aubriot MH, Totobenazara JL, Chigot JP, Menegaux F et al. Isolated retroperitoneal intradiaphragmatic bronchogenic cyst. A case report. *Clin Exp Pathol* 1999; 47: 67-70.
18. Izumi Y, Haga M, Uchida H, Asada H, Kubota H. A case report of a bronchogenic cyst of the diaphragm causing rupturing into the left pleural cavity. *Nippon Kyobu Geka Zasshi*. 1996; 44: 208-11.
19. Ichihashi T, Seki M, Koboyashgi H, Tereda T. Bronchogenic cyst of the diaphragm a case report. *Kyobu Geka* 1994; 47: 1101-4.
20. Boue DR, Smith GA, Krous HF. Lingual bronchogenic cyst in a child: an unusual site of presentation. *Pediatr Pathol* 1994; 14: 201-5.
21. Obiechina AE, Arotiba JT, Ogunbiyi JO. Coexisting congenital sublingual dermoid and bronchogenic cyst. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1999; 37: 58-60.
22. Baba H, Okumura Y, Ando M, Imura S, Morioka K et al. A high cervical intradural extramedullary bronchogenic cyst. Case report. *Paraplegia* 1995; 33: 228-32.
23. Ribet ME, Copin MC, Gosselin B. Bronchogenic cysts of the mediastinum. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1995; 109: 1003-10.
24. Michel JL, Revillon Y, Montupet P, Sauvat F, Sarnacki S et al. Thoracoscopic treatment of mediastinal cysts in children. *J Pediatr Surg* 1998; 33: 1745-8.
25. Zauribauer W, Amsler UJ, Haertel M. Bronchogenic cyst. A rare benign esophageal tumor. *Radiologe* 1996; 36: 991-5.
26. Watson DI, Britten JR. Thoracoscopic excision of bronchogenic cyst of the esophagus. *Surg Endosc* 1995; 9: 824-5.
27. Kollias VD, Panagiotides HC, Kantidakis GH, Charonis CG. Intramural bronchogenic cyst of the oesophagus: a rare entity. *Respiration* 1998; 65: 208-10.
28. Takahashi Y, Ishikawa S, Ikegami N, Tamada J, Matsukura T. A case of bronchogenic cyst: in the esophageal wall. *Nippon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* 1994; 42: 1944-8.
29. Houser SM, Traquina DN. Pathologic quiz case 1 bronchogenic cyst. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1996; 122: 680-2.
30. Soeda T, Matsuda M, Fujioka Y, Doui K, Marushashi H. A case of huge bronchogenic cyst originated in the atrial septum. *Nippon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* 1996; 44: 1781-6.
31. Hauber J, Rein J, Schaudig G, Alimendinger G, Sigel H. High grade coronary stenosis due to a bronchogenic cyst. *Dtsch Med Wochenschr* 1995; 120: 597-602.
32. Ribet ME, Copin MC, Gosselin BH. Bronchogenic cysts of the lung. *Ann Thorac Surg* 1996; 61: 1630-40.
33. Aktogu S, Yuncu G, Halficolar H, Ermete S, Budeneli T. Bronchogenic cysts: clinicopathological presentation and treatment. *Eur Respir J* 1996; 9: 2017-21.
34. Takeda S, Miyoshi S, Inoue M, Omori K, Okumara M et al. Clinical spectrum of congenital cystic disease of the lung in children. *Eur J Cardiothorac Surg* 1999; 15: 11-7.
35. Coran AG, Drongowski R. Congenital cystic disease of the tracheobronchial tree in infants and children. *Arch Surg* 1994; 129: 521-7.
36. Mendes J, Martins V, Goncalves M. Congenital bronchopulmonary cystic disease. *Acta Med Port* 1998; 11: 947-52.
37. Lopez CE. Bronchial atresia with bronchocele. *Pediatric Pathol Lab Med* 1996; 16: 149-53.
38. Barker M, Kusenbach G, Muhler E, Kleinhans E, Alzen G. Persisting unilateral lung hypoperfusion after resection of a subcarinal bronchogenic cyst. *Eur Respir J* 1996; 9: 844-5.
39. Williams S, Burton EM, Day S, Hanley M, Mercado DMG et al. Combined sequestration, bronchogenic cyst, and disgenetic lung simulating congenital lobar emphysema. *South Med J* 1996; 89: 1220-2.
40. Tripp HF, Reames MK. Resection of a bronchogenic cyst involving the wall of the mainstem bronchus and repair utilizing a pedicled pericardial flap. *Am Surg* 1997; 63: 785-7.
41. Bohle AS, Dohrmann P, Mengel W, Schroder H. Acute respiratory insufficiency in an infant caused by a tracheogenic cyst. *Thorac Cardiovasc Surg* 1999; 47: 125-5.
42. Yim AP, Lam HC, Ho JK. Thorascopic Lobectomy for an infected intrapulmonary bronchogenic cyst. *Surg Endosc* 1996; 10: 439-40.
43. Guillem P, Porte H, Marquette CH, Wurtz A. Progressive dysphonia and acute respiratory failure: revealing a bronchogenic cyst. *Eur J Cardiothorac Surg* 1997; 12: 925-7.
44. Liam CK. Intrapulmonary bronchogenic cyst presenting with haemoptysis. *Med J Malaysia* 1994; 49: 404-5.
45. Harle CC, Dearlove O, Walker RW, Wright N. A bronchogenic cyst in an infant causing tracheal occlusion and cardiac arrest. *Anaesthesia* 1999; 54: 262-5.
46. Khalil A, Carette MF, Milleron B, Grivaux M, Bigot JM. Bronchogenic cyst presenting as mediastinal mass with pleural effusion. *Eur Respir J* 1995; 8: 2185-7.
47. Kennebeck GA, Wong AK, Berry WR, Higgins JP, Manubens SM. Mediastinal bronchogenic cyst manifesting as a catastrophic myocardial infarction. *Ann Thorac Surg* 1999; 67: 1789-91.

Correspondencia:

Dr. Enrique Guzmán Rivera
 Consultorios Pediátricos:
 Félix Cuevas 301-3er Piso
 Col. Del Valle
 México. D. F.
 Tels: 5524-1993, 5524-26-31 5624-07-26
 Fax: 5524-38-40
 E-mail: eqzmanr@mailcity.com.