

Long-term Uninvestigated Dysphagia due to Bronchogenic Cyst of the Esophagus; A case Report and Review of Literature

Mehdi Ghobakhlou¹, Elnaz Ataei², Seyed Reza Fatemi^{3*}

¹Assistant Professor, Department of Internal Medicine, School of Medicine, Hamadan University of Medical Sciences, Hamadan, Iran

²Internist, Department of Internal Medicine, School of Medicine, Hamadan University of Medical Sciences, Hamadan, Iran.

³Associate Professor, Research Center of Gastroenterology and Liver Diseases, Shahid Beheshti University of Medical Sciences, Tehran, Iran

ABSTRACT

We report a rare case of congenital foregut cysts (esophageal bronchogenic cyst) in a young woman with history of long term dysphagia. She presented with dysphagia and upper gastrointestinal endoscopy showed bulge submucosal lesion in the distal of the esophagus. Endoscopic ultrasound showed a 3×3 cm cystic lesion suggestive for esophageal duplication or bronchogenic cyst. Computed tomography of chest confirmed a cystic mass located in the same region. Thoracotomy was performed and the large cystic mass was seen between the mucosa and muscular layers of the esophagus, which was successfully resected. Pathological examination of the cyst revealed characteristic findings for esophageal bronchogenic cyst.

Keywords: Dysphagia, Esophageal Cysts, Endoscopic Ultrasound

please cite this paper as:

Ghobakhlou M, Ataei E, Fatemi SR. Long-term Uninvestigated Dysphagia due to Bronchogenic Cyst of the Esophagus; A case Report and Review of Literature. *Govaresh* 2016;21:110-115.

***Corresponding author:**

Seyed Reza Fatemi, MD

Research Center of Gastroenterology

and Liver Diseases, Shahid Beheshti

University of Medical Sciences,

Tehran, Iran

Telefax: + 98 21 23031280

E-mail: dr.rfat20@yahoo.com

Received: 06 Apr. 2016

Edited: 08 Jun. 2016

Accepted: 09 Jun. 2016

دیسفاژی طولانی مدت ناشی از کیست برونکوژنیک مری:

گزارش یک مورد و مروری بر مقالات

مهدی قباخلو^۱، الناز عطایی^۲، سید رضا فاطمی^{۳*}

^۱ استادیار، گروه داخلی، دانشگاه علوم پزشکی همدان، همدان، ایران
^۲ متخصص داخلی، گروه داخلی، دانشگاه علوم پزشکی همدان، همدان، ایران
^۳ دانشیار، مرکز تحقیقات گوارش و کبد، بیمارستان طالقانی، دانشگاه علوم پزشکی شهید بهشتی، تهران، ایران

چکیده

گزارش یک مورد نادر از کیست های مادرزادی فورگات^۱ (کیست برونکوژنیک مری) در یک خانم جوان با سابقه دیسفاژی طولانی مدت می باشد. بیمار با دیسفاژی مراجعه و در اندوسکوپی گوارش فوقانی ضایعه زیر مخاطی برجسته ای را در دیستال مری نشان داد. سونوگرافی اندوسکوپی ضایعه ای کیستیک به ابعاد ۳×۳ سانتی متر دیده شد که پیشنهاد کننده کیست برونکوژنیک یا کیست دوپلیکاسیون مری بود. سی تی اسکن قفسه سینه وجود ضایعه کیستیک را در همان ناحیه تأیید کرد. در جراحی قفسه سینه توده ای بزرگ و کیستیک بین لایه های مخاطی و عضلانی دیواره مری گزارش شد که به طور کامل خارج گردید. در بررسی پاتولوژیک کیست، یافته های مشخصه کیست برونکوژنیک مری تأیید شد.

کلید واژه: دیسفاژی، کیست های مری، سونوگرافی اندوسکوپی

گوارش/ دوره ۲۱، شماره ۲/ تابستان ۱۳۹۵/ ۱۱۵-۱۱۰

^۱ Foregut

سابقه یا زمینه:

کیست های تکاملی سیستم فورگات نادر هستند و در اثر جوانه زدن یا تقسیم شدن غیر طبیعی این سیستم در حین تکامل ایجاد می شوند (۱) و میزان شیوع آنها ۱ در هر ۸۲۰۰ نفر گزارش شده است (۳). کیست های مری، کیست های پریکاردیال و پولورال و کیست های تیموس می باشند (۴). کیست برونکوژنیک در بالغین ناشایع است (۱) و نوع پارازوفازیتال آن نادر است و تا کنون فقط ۹۶ مورد از آن در مقالات گزارش شده است (۵، ۶). این کیست ها ممکن است بدون علامت باشند یا با سرفه، تنگی نفس، درد قفسه سینه، تب، کاهش وزن یا دیسفاژی تظاهر پیدا کنند (۷). روش های متعددی برای تشخیص کیست برونکوژنیک به کار می روند. اندوسکوپی، سی تی اسکن و MRI برای تشخیص کیست

*نویسنده مسئول: سیدرضا فاطمی

تهران، ولنجک، بیمارستان طالقانی، مرکز تحقیقات گوارش و کبد

تلفن و نامبر: ۰۲۱-۳۳۰۳۱۲۸۰

پست الکترونیک: dr.rfat2@yahoo.com

تاریخ دریافت: ۹۵/۱/۱۸

تاریخ اصلاح نهایی: ۹۵/۳/۱۹

تاریخ پذیرش: ۹۵/۳/۲۰

برونکوژنیک به کاربرد دارد. سونوگرافی اندوسکوپی نقش مهمی در تشخیص تومورهای خوش خیم مری و کیست های مری دارد (۸). در این گزارش، یک بیمار مبتلا به کیست برونکوژنیک مری را معرفی می شود که با دیسفاژی مراجعه و از طریق اندوسکوپی و سونوگرافی اندوسکوپی تشخیص داده شد.

گزارش مورد:

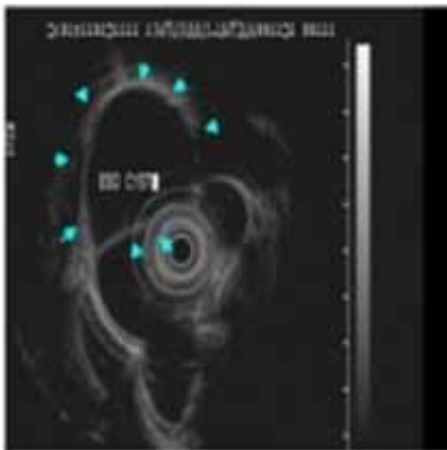
بیمار خانمی ۲۳ ساله بود که با شکایت دیسفاژی مراجعه کرد. وی ذکر می کرد که مشکلش بیمار از یک سال قبل شروع و به تدریج افزایش پیدا کرده است.

دیسفاژی بیمار در ابتدا فقط با مصرف جامدات رخ می داد ولی به مرور زمان دیسفاژی به مایعات نیز به وجود آمده بود. بیمار سوزش سر دل، رگورژیتاسیون، درد قفسه سینه و کاهش وزن نداشت. همچنین سابقه بیماری خاصی نداشت و مصرف سیگار یا الکل را ذکر نمی کرد. معاینه فیزیکی بیمار نرمال بود. آزمایش های روتین نرمال بود. در اندوسکوپی گوارش فوقانی ضایعه برجسته ای در یک سوم تحتانی مری در ناحیه زیر مخاط رویت شد، اندوسکوپ به سادگی وارد معده شد (شکل ۱).

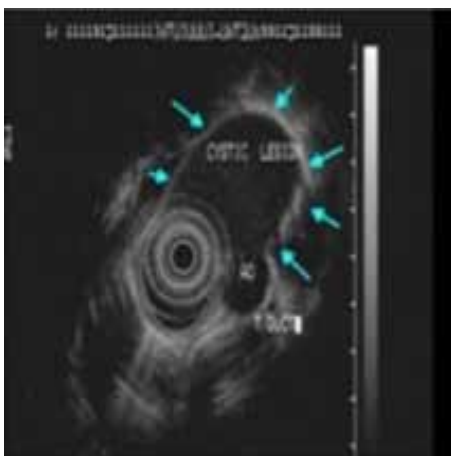
در سونوگرافی اندوسکوپی، ضایعه ای کیستیک به ابعاد ۳×۳ سانتی متر در یک سوم تحتانی مری رویت شد که احتمال کیست برونکوژنیک یا دوپلیکاسیون مری مطرح شد (شکل ۲a, ۲b).



شکل ۱: ناندوسکوپی گوارش فوقانی در یک خانم ۲۳ ساله با دیسفاژی پیشرونده ضایعه برجسته ای را در یک سوم تحتانی مری در ناحیه زیر مخاطی نشان می دهد



2a



2b

شکل 2a,b: سونوگرافی اندوسکوپی، ضایعه ای کیستیک به ابعاد ۳×۲ سانتی متر در یک سوم تحتانی مری را نشان می دهد

عکس ساده قفسه سینه نرمال بود. در سی تی اسکن قفسه سینه، ضایعه ای کیستیک در همان ناحیه مری رویت شد (عکس ۳).

جراحی قفسه سینه ضایعه ای کیستیک بین لایه های مخاطی و عضلانی مری رویت شد، مخاط سطحی مری سالم بود، ارتباطی بین کیست با لومن مری وجود نداشت. کیست به صورت کامل خارج و عارضه ای بعد از عمل جراحی دیده نشد.

در بررسی پاتولوژیک، ابعاد کیست ۳×۳ سانتی متر و حاوی مایع شیرین رنگ بود که سیتولوژی آن از نظر بدخیمی منفی گزارش شد. دیواره کیست با اپی تلیوم استوانه ای از نوع تنفسی مفروش شده بود که این یافته ها منطبق با کیست برونکوژنیک مری است (عکس ۴). در پیگیری، علایم بیمار بر طرف شد و شواهدی به نفع عود وجود نداشت.

بحث:

چکیست های فورگات اختلالات تکاملی نادری هستند و در اثر جوانه زدن غیر طبیعی یا تقسیم شدن سیستم فورگات اولیه در حین تکامل ایجاد می شوند. (۱ و ۲) کیست برونکوژنیک در بالغین ناشایع است (۲) و نوع پارازوفازیال آن نادر است (۵-۳) و تنها در گزارش مورد ها گزارش شده است. (۸-۶)

دکتر مایر در سال ۱۹۴۸، کیست های برونکوژنیک مدیاستن را بر اساس محل آنها بر انواع زیر طبقه بندی کرد:

- ۱- پاراتراکئال
- ۲- کارینال
- ۳- هیلار
- ۴- پارا ازوفازیال
- ۵- سایر موارد

کیست در برخی بیماران چسبندگی سطحی بر دیواره مری دارد ولی در سایر موارد کاملاً داخل دیواره مری قرار دارد و به صورت ضایعه برجسته ای در فضای داخلی مری دیده می شود. (۹)

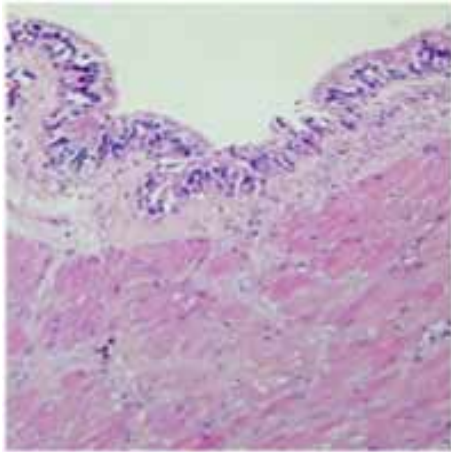
کیست های برونکوژنیک مری بیشتر در خانم های جوان دیده می شوند و به صورت دیسفاژی و درد قفسه سینه به خصوص در حین فعالیت تظاهر پیدا می کنند. (۶) بیمار خانمی جوان بود که با دیسفاژی طولانی مدت مراجعه کرده بود.

تشخیص های افتراقی شامل کیست دوپلیکاسیون، لیومیوم مری، فیبروم پلور، تومورهای نوروژن و کیست های برونکوژنیک است. (۱۰)

اغلب بیماران مبتلا به کیست های مری بدون علامت هستند. دیسفاژی یا درد قفسه سینه در یک سوم بیماران گزارش شده است. از دیگر تظاهرات شامل درد شکمی، سرفه یا تنگی نفس است. در بعضی بیماران، ضایعه به صورت اتفاقی در گرافی قفسه سینه کشف می رود. (۱۱ و ۱۲)

گاهی اوقات تشخیص کیست های داخل جداری مری با تصویر برداری و حتی با آزمایش بافت شناسی مشکل است. (۱۳ و ۱۴)

اندوسکوپی برای افتراق کیست از سایر ضایعات خارج مخاطی مری به کار می رود. در اندوسکوپی یا بلع باریم، کیست به صورت یک توده بر



شکل ۴: در بررسی پاتولوژیک، ضایعه ای کیستیک رویت شد. دیواره کیست با اپی تلیوم استوانه ای از نوع تنفسی مفروش شده است که این یافته ها منطبق با کیست برونکوژنیک مری است



شکل ۳: در سی تی اسکن قفسه سینه، ضایعه ای کیستیک در دیستال مری رویت می شود.

دکتر ویلیدی^۲ و همکاران مطالعات سونوگرافی اندوسکوپیک بیماران مبتلا به کیست های مדיاستن را در یک مرکز پزشکی بررسی کردند. در این مطالعه اطلاعات ۲۰ بیمار مورد مطالعه قرار گرفت. در ۱۹ بیمار تشخیص قطعی کیست مדיاستن با سونوگرافی اندوسکوپیک میسر شد. کیست در ۱۲ بیمار بدون اکو، ۶ مورد هایپواکو و یک مورد دارای اکوی مختصر افزایش یافته بود. سی تی اسکن و MRI در ۱۸ بیمار انجام شد ولی کیست فقط در ۴ مورد از این بیماران قابل تشخیص بود. آنها به این نتیجه رسیدند که سونوگرافی اندوسکوپیک یک روش غیر تهاجمی برای تشخیص کیست های مدیاسین است و دقیق تر از سی تی اسکن و سایر روش ها می باشد. همچنین به علت خطر عفونت، آسپیراسیون از این ضایعات باید با دقت و احتیاط کامل انجام شود.^(۲۳)

دکتر لیم^۳ و همکاران یک بیمار مبتلا به کیست برونکوژنیک مری را معرفی کردند که قبل از عمل جراحی با سونوگرافی اندوسکوپیک شناسایی شد و تشخیص آن با جراحی تایید گردید. آنها پیشنهاد کردند که سونوگرافی اندوسکوپیک تست انتخابی برای تشخیص کیست های برونکوژنیک پارازوفراژئال است.^(۸)

سونوگرافی اندوسکوپیک می تواند تشخیص کیست برونکوژنیک را تایید کند. دکتر کولیاس^۴ و همکاران انجام آسپیراسیون سوزنی از ضایعه کیستیک مری را توصیه نکردند زیرا این عمل نمی تواند باعث افتراق کیست برونکوژنیک یا دوپلیکاسیون شود؛ در ضمن خطر عفونت یا خونریزی کیست نیز وجود دارد.^(۱۵) در بیمار معرفی شده ما، سونوگرافی اندوسکوپیک پیشنهاد کننده کیست دوپلیکاسیون یا برونکوژنیک مری بود. عوارض شایع کیست های برونکوژنیک شامل خونریزی داخل کیست، عفونت، التهاب، زخم شدگی، پارگی یا سوراخ شدگی کیست به داخل نای، برونش، پریکارد یا پلور می باشد.^(۶)

جسته زیر مخاطی با مخاط سطحی سالم دیده می شود. در این بیمار، بلع باریم قبل از اندوسکوپیی انجام نشده بود ولی اندوسکوپیی ضایعه برجسته ای را در دیستال مری مشخص کرد.

کیست های انتروژنیک و برونکوژنیک بر اساس محتوای کیست و ساختار دیواره داخلی کیست افتراق داده می شوند. کیست های برونکوژنیک مملو از مایع سفید شیری رنگ هستند که توسط مخاط استوانه ای تنفسی مفروش شده است در حالی که کیست های انتروژنیک حاوی مایع قهوه ای رنگ هستند و توسط اپی تلیوم روده ای یا معده ای مفروش شده است.^(۱۵)

اگر چه روش های تشخیصی و تصویر برداری متعددی اعم از بلع باریم، اندوسکوپیی، سی تی اسکن، MRI یا سونوگرافی اندوسکوپیک برای تشخیص و افتراق قبل از جراحی کیست های برونکوژنیک به کار برده می شوند ولی تشخیص قطعی این کیست ها فقط با اتکا به این روش ها قبل از عمل جراحی دشوار است.

اغلب کیست های برونکوژنیک در سی تی اسکن ضریب میرایی پایین (مثل آب) دارند اما بعضی کیست ها ضریب میرایی^۱ بالاتری (مثل بافت نرم) دارند.^(۱۶ و ۱۷)

کیست های برونکوژنیک مری ضایعاتی با ابعاد متوسط ۳ تا ۴ سانتی متری هستند که در ناحیه مید توراسیک مری قرار دارند.^(۶) این کیست ها معمولاً به صورت توده ای با حاشیه مشخص دیده می شوند.^(۱۸ و ۱۹) اخیراً سونوگرافی اندوسکوپیک بیش از پیش برای تشخیص کیست های مدیاستن و مری به کار می رود. کیست دوپلیکاسیون معمولاً به صورت ضایعه ای هموزن و بدون اکو با حاشیه منظم و با منشأ زیر مخاطی (لایه سوم) و یا به صورت ضایعه ای خارج دیواره مری دیده می شود، همچنین ممکن است به صورت ضایعه ای با سطح مایع یا موسین یا مواد اکوزن دیده شود.^(۲۰-۲۲)

² Wildi

³ Lim

⁴ Kollias

¹ Attenuation

از عود آن ضروری است. (۳۰-۲۸)
بیمار تحت جراحی باز قفسه سینه قرار گرفت و عارضه ای بعد از عمل جراحی رخ نداد و طی پیگیری شش ماهه، بیمار همچنان بدون علامت بود.

نتیجه گیری:

سونوگرافی اندوسکوپی یک ابزار تشخیصی دقیق برای افتراق ضایعات داخل جداری مری می باشد و پیشرفت های بیشتر در تکنیکهای سونوگرافی اندوسکوپی می تواند منجر به تشخیص قطعی این ضایعات قبل از جراحی شود.

کیست های برونکوژنیک مری می توانند با جراحی باز، جراحی از طریق توراوسکوپی یا برداشت مخاطی از طریق اندوسکوپی^۱ خارج شوند. (۲۸-۲۴)

در بررسی و پیگیری هفت بیمار مبتلا به کیست برونکوژنیک مری، توصیه شد که جراحی باید در همه موارد شناسایی شده کیست برونکوژنیک مری (شامل موارد بدون علامت) انجام شود زیرا وقتی که کیست علامت دار می شود، خطر جراحی و عوارض مرتبط با آن افزایش پیدا می کند. (۶)

عوارض بعد از جراحی شامل پنوموتوراکس، پنومومدیاستن، آمفییزم زیر جلوی و عفونت می باشد. خارج کردن کامل کیست برای پیشگیری

¹ Endoscopic mucosal resection

REFERENCES

- Sharma S, Nezakatgoo N, Sreenivasan P, Vanatta J, Jabbour N. Foregut cystic developmental malformation: new taxonomy and classification--unifying embryopathological concepts. *Indian J Pathol Microbiol* 2009;52 4: 461-72.
- 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.
- Arbona JL, Fazzi JG, Mayoral J. Congenital esophageal cysts: case report and review of literature. *Am J Gastroenterol* 1984;79:177-82.
- Ochsner JL, Ochsner F. Congenital cysts of the mediastinum: 20-year experience with 42 cases. *Ann Surg* 1966; 163:6:909-20.
- Takeda S, Miyoshi S, Minami M, Ohta M, Masaoka A, Matsuda H. Clinical spectrum of mediastinal cysts. *Chest* 2003;124:1:125-32.
- Ko SF, Hsieh MJ, Lin JW, Huang CC, Li CC, Cheung YC, et al. Bronchogenic cyst of the esophagus: clinical and imaging features of seven cases. *Clin Imaging* 2006;30:309-14.
- Lilly JO, Bruni H, McHardy G. Bronchogenic cyst of the esophagus. Report of a case and review of the literature. *Gastrointest Endosc* 1971;18:31-2.
- Lim LL, Ho KY, Goh PM. Preoperative diagnosis of a paraesophageal bronchogenic cyst using endosonography. *Ann Thorac Surg* 2002;73:633-5.
- Maier HC. Bronchogenic cyst of the mediastinum. *Ann Surg* 1948;127:3:476-502.
- Chafik A, Benjelloun A, Qassif H, El Fikri A, El Barni R, Zrara I. Intramural esophageal bronchogenic cysts. *Asian Cardiovasc Thorac Ann* 2011;19:69-71.
- Dujon A, Carnot F, Riquet M, Dabesse B. 6 para-esophageal cysts. Discussion on their origins. *Ann Radiol (Paris)* 1991; 34:4: 261-6.
- Matsumura Y, Handa M, Saito R, Ichinose T, Shiraishi Y, Sasaki H, et al. Clinicopathologic assessment of esophageal cysts--a report of 8 cases. *Nihon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* 1990; 38:982-8.
- Yang X, Partanen K, Seppä A, Berg E, Pasanen P. Paraesophageal bronchogenic cyst in the adult: can it be differentiated from intramural esophageal cyst by different imagings? Case report and review of the literature. *Clin Imaging* 1994;18:68-71.
- Sirivella S, Ford WB, Zikria EA, Miller WH, Samadani SR, Sullivan ME. Foregut cysts of the mediastinum. Results in 20 consecutive surgically treated cases. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1985;90:776-82.
- Kollias VD, Panagiotides HC, Kantidakis GH, Charonis CG. Intramural bronchogenic cyst of the oesophagus: a rare entity. *Respiration* 1998;65:208-10.
- Zylak CJ, Eyster WR, Spizarny DL, Stone CH. Developmental lung anomalies in the adult: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 2002; 22:25-43.
- Mata JM, Cáceres J, Lucaya J, García-Conesa JA. CT of congenital malformations of the lung. *Radiographics* 1990;10:651-74.
- McAdams HP, Kirejczyk WM, Rosado-de-Christenson ML, Matsumoto S. Bronchogenic cyst: imaging features with clinical and histopathologic correlation. *Radiology* 2000; 217:441-6.
- Zaunbauer W, Amsler UJ, Haertel M. Bronchogenic cyst. A rare benign esophageal tumor. *Radiologe* 1996;36: :991-5.
- Van Dam J, Rice TW, Sivak MV Jr. Endoscopic ultrasonography and endoscopically guided needle aspiration for the diagnosis of upper gastrointestinal tract foregut cysts. *Am J Gastroenterol* 1992;87:762-5.
- Geller A, Wang KK, DiMugno EP. Diagnosis of foregut duplication cysts by endoscopic ultrasonography. *Gastroenterology* 1995;109:838-42.
- Faigel DO, Burke A, Ginsberg GG, Stotland BR, Kadish SL, Kochman ML. The role of endoscopic ultrasound in the evaluation and management of foregut duplications. *Gastrointest Endosc* 1997;45:99-103.
- Wildi SM, Hoda RS, Fickling W, et al. Diagnosis of benign cysts of the mediastinum: the role and risks of EUS and FNA. *Gastrointest Endosc* 2003; 58:362.
- Koizumi K, Tanaka S, Haraguchi S, Akiyama H, Mikami I,

25. pled resection for bronchogenic cyst of the esophagus performed using video-assisted thoracic surgery. *Esophagus* 2011; 8:191-5.
26. Sashiyama H, Miyazaki S, Okazaki Y, Kaiho T, Nakajima Y, Hoshino T, et al. Esophageal bronchogenic cyst successfully excised by endoscopic mucosal resection. *Gastrointest Endosc* 2002;56:141-5.
27. Merry C, Spurbeck W, Lobe TE. Resection of foregut-derived duplications by minimal-access surgery. *Pediatr Surg Int* 1999;15: 224-6.
28. Tölg C, Abelin K, Laudenbach V, de Heaulme O, Dorgeret S, Lipsyc ES, et al. Open vs thorascopic surgical management of bronchogenic cysts. *Surg Endosc* 2005;19:77-80.
29. Muramatsu T, Shimamura M, Furuichi M, Takeshita S, Morooka H, Tanaka Y, et al. Thorascopic Resection of Mediastinal Bronchogenic Cysts in Adults. *Asian J Surg* 2011; 34:11-4.
30. Mouroux J, Bourgeon A, Benchimal D, Bernard JL, Chazal M, Padovani B, et al. Bronchogenic cysts of the esophagus. Classical surgery or video-surgery? *Chirurgie* 1991;117:564-8.