

Quiste broncogénico cervical subcutáneo en un lactante: Reporte de un caso y revisión de literatura

Subcutaneous cervical bronchogenic cyst in an infant:
A case report and literature review

Jimmy Andrade-Montesdeoca¹, Diego León-Ochoa², Julián Luna-Montalván², Edwin Ross-Rodríguez²,
Verónica Pólit-Guerrero², Daniel Acosta-Farina^{1,2}

¹ Universidad Católica de Santiago de Guayaquil, Ecuador.

² Hospital de Niños Dr. Roberto Gilbert Elizalde, Guayaquil, Ecuador.



PARA CITAR ESTE ARTÍCULO

Andrade-Montesdeoca JI, Diego León-Ochoa D, Luna-Montalván J, Ross-Rodríguez E, Polit-Guerrero V, Acosta-Farina D. Quiste broncogénico cervical subcutáneo en un lactante: Reporte de un caso y revisión de literatura. Rev. Med. UCSG;24(2):29-34

DOI

<https://doi.org/10.23878/medicina.v24i2.1199>

CORRESPONDENCIA

jimmy_andm@hotmail.com



UNIVERSIDAD CATÓLICA
DE SANTIAGO DE GUAYAQUIL

Av. Carlos Julio Arosemena, Km 1,5. Guayaquil, Ecuador
Teléfono: +593 4 3804600
Correo electrónico: revista.medicina@cu.ucsg.edu.ec
Web: www.ucsg.edu.ec



© The Autor(s), 2023

This work is licensed under a Creative Commons Attribution 4.0 International License, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited. To view a copy of this license visit <http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>.

Quiste broncogénico cervical subcutáneo en un lactante: Reporte de un caso y revisión de literatura

Subcutaneous cervical bronchogenic cyst in an infant: A case report and literature review

Jimmy Andrade-Montesdeoca¹, Diego León-Ochoa², Julián Luna-Montalván², Edwin Ross-Rodríguez², Verónica Pólit-Guerrero², Daniel Acosta-Farina²

¹ Universidad Católica de Santiago de Guayaquil, Ecuador.

² Hospital de Niños Dr. Roberto Gilbert Elizalde, Guayaquil, Ecuador.

RESUMEN

Los quistes broncogénicos son malformaciones particularmente raras, que derivan del mediastino anterior. Su reporte es infrecuente en pediatría y más raro de localización subcutánea en el cuello, pudiendo fistulizar a traquea y provocar complicaciones asociadas. Hasta la fecha hay 26 casos reportados, siendo su diagnóstico histopatológico y su tratamiento quirúrgico. Presentamos el caso de un lactante con una masa subcutánea cervical medial anterior que luego de ser extirpada el reporte microscópico reveló un quiste broncogénico. Se discute sobre el caso y se hace una revisión de la literatura.

PALABRAS CLAVE

Quiste broncogénico, pared torácica, subcutáneo, cirugía pediátrica, quiste preesternal.

ABSTRACT

Bronchogenic cysts are particularly rare malformations that derive from the anterior mediastinum. Reports in pediatrics is infrequent and more rarely when located subcutaneously in the neck which may produce a fistula in the trachea and cause related complications. To date, there are 26 cases reported, being the diagnosis histopathological and the treatment surgical. We present the case of an infant with an anterior medial cervical subcutaneous mass that after being excised the microscopic report revealed a bronchogenic cyst. We discuss the case and perform a literature review.

KEYWORDS

Bronchogenic cyst, chest wall, subcutaneous, pediatric surgery, preternal cyst.

Introducción

Los quistes broncogénicos son malformaciones particularmente raras procedentes del mediastino anterior embrionario (1). Se localizan frecuentemente en el mediastino y pulmones (65-90%); sin embargo, se han reportado en diversos sitios anatómicos como la escápula, pericardio, omento, región perianal, retroperitoneal y cervical. Suelen ser masas mediastínicas asintomáticas solitarias. Los quistes broncogénicos en el tejido subcutáneo son excepcionalmente infrecuentes (2). A continuación, se presenta el caso de un lactante con una masa subcutánea en región cervical que se reportó como un quiste broncogénico en la histopatología. Se discute el caso y se realizará revisión de la literatura.

Reporte del caso

Se trata de un paciente de sexo masculino de 1 año 3 meses de edad, afro ecuatoriano, obtenido por cesárea a las 40 semanas de gestación, con Apgar 8 al minuto y 10 a los 5 minutos, con antecedente de hiperreactividad bronquial, sin ingresos previos, y esquema de vacunas completo, sin antecedentes familiares de importancia. Madre refiere tumefacción en región supraesternal media desde el nacimiento, dolorosa, que cede al drenado espontáneo en dos ocasiones con salida de material purulento sin estudio del mismo, y sin adenopatías asociadas. Debido a que presenta persistencia del abultamiento en dicha zona acude por primera vez a la consulta externa de Cirugía Pediátrica donde es valorado. Al examen físico el peso y la talla estaba acorde a la edad. En la región cervical media a nivel de la horquilla esternal se palpa masa redondeada de consistencia blanda, de bordes regulares, de aproximadamente 4 centímetros de diámetro, con cicatriz por drenaje de antiguos procesos supurativos.

Dentro de su abordaje se solicita auxiliares imagenológicos entre ellos tomografía axial computarizada (TAC) de tórax que reporta en partes blandas de región anterior y superior del esternón una masa de forma ovalada de bordes bien delimitados que mide aproximadamente 27.2 mm por 12.8 mm, con densidad de 25 unidades Hounsfield, y pequeñas nodulaciones hiperdensas en su interior. En la fistulografía con medio de contraste hidrosoluble se observa una cavidad de apariencia redondeada de 4 x 4 centímetros de diámetro, que no conecta con esófago o tráquea (Figura 1). La química sanguínea reportaba una hemoglobina de 8.6 g/dL, hematocrito de 28.4%, leucocitos 8,740/ μ L, neutrófilos 1,550/ μ L, plaquetas 572,000/ μ L, tiempo de protombina de 10.8 segundos, tiempo de tromboplastina parcial de 27.6 segundos. Con el diagnóstico de quiste cervical es intervenido quirúrgicamente, donde se efectúa la exéresis completa de la tumoración, con márgenes de tejido sano de 2 centímetros a su alrededor, de forma redondeada, consistencia blanda, bordes regulares y no infectado. A la apertura del quiste se encontró contenido mucoso oscuro, con una tumoración en su interior, de forma elíptica y aspecto liso, morulado, adherida al techo del quiste (Figura 2). El estudio histopatológico confirmó un quiste revestido por epitelio de tipo respiratorio, el cual establecería el diagnóstico definitivo, además áreas de metaplasia madura focal (Figura 3). Es dado de alta hospitalaria al día siguiente de la intervención quirúrgica sin complicaciones, y permanece en controles por consulta externa de forma asintomática.

Discusión

Los quistes broncogénicos se localizan con mayor frecuencia en el mediastino y el parénquima pulmonar. El mecanismo subyacente de la formación de los quistes es la ramificación

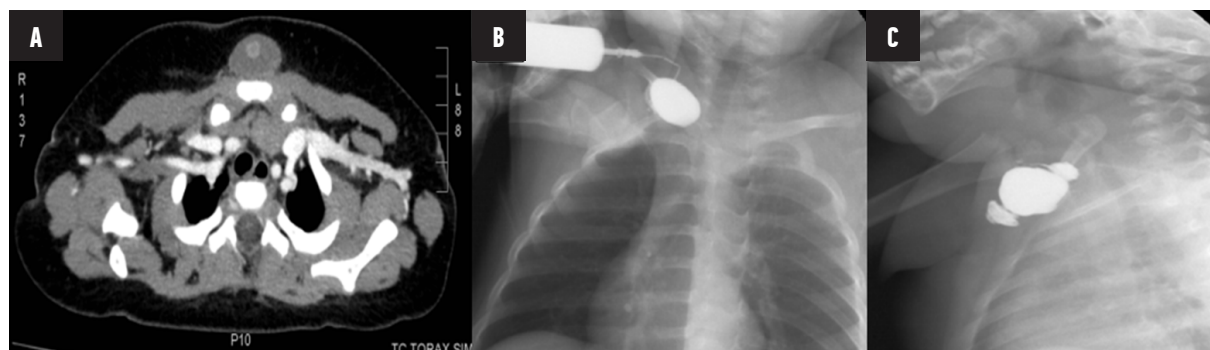


Figura 1. Estudios de imagen: **A:** Corte axial de tomografía simple de tórax. En región preesternal se observa un quiste en cuyo interior se ve una imagen hiperintensa redondeada. **B:** Radiografía de tórax, proyección antero-posterior: fistula que llena quiste con medio de contraste de forma ovalada, en región cervical. **C:** Radiografía de tórax proyección lateral: quiste en tejidos blandos, sin comunicación hacia tórax.

Tabla 1. Casos reportados en la literatura de quistes broncogénicos pediátricos

AUTOR	EDAD	SEXO	LOCALIZACIÓN
Fraga <i>et al.</i> 1971 (10)*	2 años	3 Masculino	Escapular
Van der Putte <i>et al.</i> 1985 (11)	4 años	Masculino	Escapular
Pul and Pul. 1994 (12)	2 años	Masculino	Escapular
Tresser <i>et al.</i> 1994 (13)	2 años	Masculino	Escapular
Jona. 1995 (14)	2 años	Masculino	Escapular
Das <i>et al.</i> 2003 (15)	10 años	Masculino	Escapular
Manconi <i>et al.</i> 2003 (16)	8 años	Femenino	Escapular
Ozel <i>et al.</i> 2005 (17)	2 años	Femenino	Escapular
Kundal <i>et al.</i> 2008 (18)	3 años	Masculino	Escapular
Farag <i>et al.</i> 2010 (19)	5 años	Femenino	Escapular
Nakamura <i>et al.</i> 2011 (20)	2 años	Masculino	Escapular
Al-Balushi <i>et al.</i> 2012 (21)	3 años	Masculino	Escapular
Blanchard <i>et al.</i> 2012 (22)	4 años	Femenino	Escapular
Zhu <i>et al.</i> 2014 (23)	3 años	Masculino	Escapular
Sun <i>et al.</i> 2014 (24)	2 años	Masculino	Escapular
Cohn <i>et al.</i> 2020 (2)	4 días a 8 años	4 Masculino/ 2 Femenino	Línea media de cuello, submentoniano, tórax anterior, subcarinal, mediastino posterior, intratiroideo
Mir <i>et al.</i> 2018 (8)	5 años	Femenino	Escapular
Ayudb <i>et al.</i> 2020 (1)	11 meses	Masculino	Tórax anterior

* El número en paréntesis corresponde a la referencia pertinente.

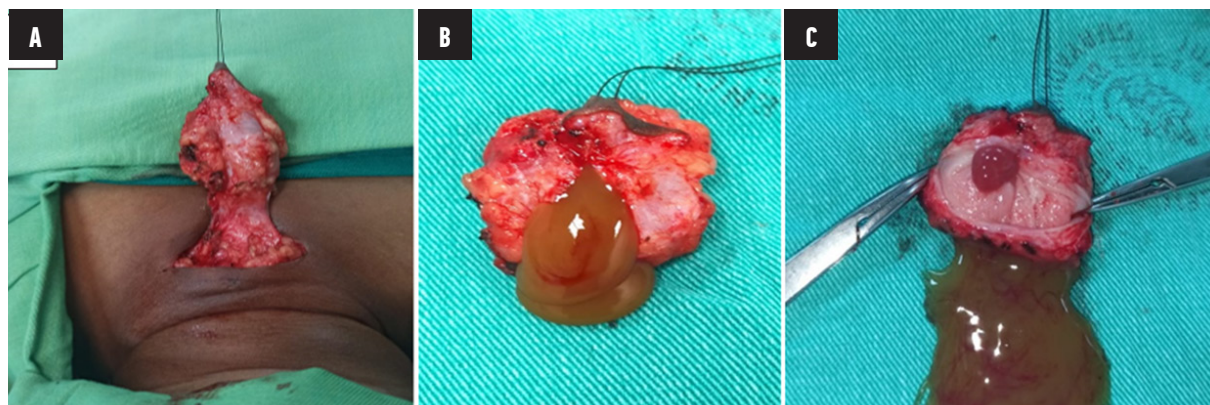


Figura 2. Hallazgos transquirúrgicos: **A:** Quiste cervical resecaado. **B:** Apertura del quiste con presencia de contenido mucoso. **C:** En el centro del quiste aperturado se observa formación de mórula.

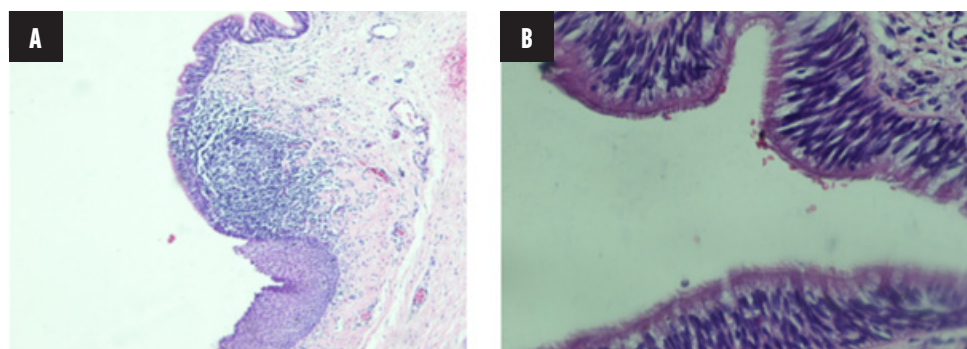


Figura 3. Histopatología: **A:** Metaplasia escamosa, madura, parcial del epitelio cilíndrico pseudo-estratificado-ciliado. En el estroma subyacente se observa cumulo linfoide. Tinción con Hematoxilina/ Eosina. Aumento 5X. **B:** Epitelio cilíndrico pseudo-estratificado, ciliado, sin atipias nucleares, ni mitosis. Tinción con Hematoxilina/ Eosina. Aumento 40X.

aberrante del epitelio respiratorio en el periodo embrionario del mediastino anterior. La fisiopatología para la formación de quistes con ubicación lejana en relación a sus sitios habituales de localización se basa en la migración de células mesenquimatosas aberrantes, la metaplasia o la diferenciación heterotópica; sin embargo, aún es tema de estudio (1).

En pocas ocasiones se han reportado casos de un quiste broncogénico de la pared torácica, en la literatura la mayoría han sido informados en adultos siendo pocos los casos pediátricos (2-7). El presente reporte se constituye en el vigésimo séptimo a nivel mundial y el segundo caso conocido con localización en el cuello (2).

La localización del quiste, sus estructuras circundantes, la existencia o no de compresión, el tamaño y la velocidad de crecimiento van a originar manifestaciones clínicas variadas. La mayoría de los casos son asintomáticos, pero en algunas ocasiones sobretodo en quistes más grandes localizados en mediastino o pulmones, se podrían presentar síntomas como tos, dificultad para respirar y/o deglutir, hemoptisis e infección. Los pacientes con quistes subcutáneos denotan dolor, aumento de tamaño de la masa, drenaje de la protuberancia como ocurrió en nuestro caso, así como presentar celulitis y/o abscesos (3-9). En la Tabla 1 se exponen algunos de los casos reportados en la literatura mundial (10-24).

Los quistes broncogénicos subcutáneos son extremadamente raros, la mayoría de los casos clínicos reportados refieren encontrarse en el área escapular, así como lo detalla Mir *et al.* [8] en una revisión de la literatura. Los quistes son uniloculares revestidos por epitelio respiratorio columnar ciliado, contienen músculo liso, cartílago y glándulas bronquiales sero-mucinosas [9], que es el mismo epitelio reportado en el presente caso.

En casos como el presente, se puede recurrir a herramientas de imagen como la TAC para evaluar la compresión y/o invasión de estructuras circundantes. Como apoyo diagnóstico se realizó fluoroscopia con medio de contraste hidrosoluble y la TAC de cuello que demostró la formación de una estructura quística, por lo tanto, el tratamiento es quirúrgico, con la escisión completa del quiste (25) y el diagnóstico definitivo es histopatológico.

Conclusión

Los quistes broncogénicos son extremadamente raros en localizaciones extrapulmonares, siendo excepcional la localización a nivel

cervical. Son de sintomatología variada según su ubicación, siendo su resolución quirúrgica, y su diagnóstico definitivo es histopatológico al demostrar la presencia de epitelio respiratorio. Ante la presencia de una masa de este tipo en un paciente pediátrico se debe tener en cuenta en el diagnóstico síntomas respiratorios recurrentes, ya que se sabe que son predominantemente torácicos (mediastinales y pulmonares). Sin embargo, también pueden presentarse en cuello, tejido celular subcutáneo, o ser paraesternales. La clínica, la radiografía de tórax y tomografías nos permitirán identificar la lesión, la ubicación y su extensión.

Financiamiento

Ninguno.

Conflictos de interés

Los autores expresan no tener conflictos de interés.

Referencias

1. Ayub A, Abid A, Tran S, Bowen-Jallow K. Subcutaneous bronchogenic cyst of the chest wall. *J Pediatr Surg Case Reports*. 2020;52:101337.
2. Cohn J, Rethy K, Prasad R, Mae Pascasio J, Annunzio K, Zwillenberg S. Pediatric Bronchogenic Cysts: A Case Series of Six Patients Highlighting Diagnosis and Management. *J Investig Surg*. 2020;33(6):568-573.
3. Che W, Zang Q, Zhu Q, *et al.* Lipoma-like bronchogenic cyst in the right chest sidewall: A case report and literature review. *Ann Thorac Cardiovasc Surg*. 2016;22(6):370-374.
4. Nakao T, Katayama M, Kino H, Hanaoka N, Ueda K. A Case of Giant Subcutaneous Bronchogenic Cyst. *Arch Clin Med Case Reports*. 2020;590-595.
5. Jajoo S, Shukla S, Acharya S. Presternal bronchogenic cyst: A rare presentation. *Indian J Med Spec*. 2019;10(2):105-107.
6. Shilova M, Wong M, Davies J, Kimble R. A bronchogenic cyst presenting as a presteral abscess. *J Pediatr Surg Case Reports*. 2020;63:101653.
7. Schittny J. Development of the lung. *Cell Tissue Res*. 2017;367(3):427-444.
8. Mir Z, Wang A, Winthrop A, Kolar M. Scapular Bronchogenic Cyst in a Girl Presenting as Recurrent Cellulitis: A Case Report and Review of the Literature. *Case Rep Pediatr*. 2018;2018:7463724.
9. Husain A. *Thoracic Pathology E-Book: A Volume in the High Yield Pathology Series*. Elsevier Health Sciences. 2012.

10. Fraga S, Helwig E, Rosen S. Bronchogenic cysts in the skin and subcutaneous tissue. *Am J Clin Pathol.* 1971;56(2):230-238.
11. Van der Putte S, Toonstra J. Cutaneous 'bronchogenic' cyst. *J Cutan Pathol.* 1985;12(5):404-409.
12. Pul N, Pul M. Bronchogenic cyst of the scapular area in an infant: case report and review of the literature. *J Am Acad Dermatol.* 1994;31(1):120-122.
13. Tresser N, Dahms B, Berner J. Cutaneous bronchogenic cyst of the back: a case report and review of the literature. *Pediatr Pathol.* 1994;14(2):207-212.
14. Jona J. Extramediastinal bronchogenic cysts in children. *Pediatric dermatology.* 1995;12(4):304-306.
15. Das K, Jackson P, D'Cruz A. Periscapular bronchogenic cyst. *Indian J Pediatr.* 2003;70(2):181-182.
16. Manconi R, Bolla G, Pavon I. Cisti broncogena sottocutanea congenita del dorso. Segnalazione di un raro caso e revisione della letteratura [Congenital bronchogenic subcutaneous cyst of the back. A case report and review of the literature]. *Pediatr Med Chir.* 2003;25(5):364-366.
17. Ozel S, Kazez A, Koseogullari A, Akpolat. Scapular bronchogenic cysts in children: case report and review of the literature. *Pediatr Surg Int.* 2005;21(10):843-845.
18. Kundal K, Zargar N, Krishna A. Scapular bronchogenic cyst. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2008;13(4):147-148.
19. Farag M, Naguib N, Izzidien A. Bronchogenic cyst, case report and review of literature. *West Lond Med J.* 2010;2:1-4.
20. Nakamura Y, Fujishima F, Ito S, *et al.* A case of cutaneous bronchogenic cyst in the scapular area. *Pol J Pathol.* 2011;62(2):120-121.
21. Al-Balushi Z, Ehsan M, Al Sajee D, Al Riyami M. Scapular Bronchogenic cyst: A case report and literature review. *Oman Med J.* 2012;27(2):161-163.
22. Blanchard M, Kadlub N, Haddad D, *et al.* Scapular cystic lesion: Bronchogenic cyst, a rare diagnosis. *J Saudi Soc Dermatol & Dermatologic Surg.* 2012;16(1):19-20.
23. Zhu L, Davies J, Kimble RM. Subcutaneous bronchogenic cyst in the scapular region presenting as an acute abscess. *J Pediatr Surg Case Reports.* 2014;2(11):487-488.
24. Sun J, Yuan T, Deng H. Cutaneous bronchogenic cyst in the left scapular region of a boy. *World J Pediatr.* 2014;10(4):365-367.
25. Jiang J, Yen S, Lee S, Chuang J. Differences in the distribution and presentation of bronchogenic cysts between adults and children. *J Pediatr Surg.* 2015;9(10):2017-2021.