

گزارش یک مورد کیست برونکوژنیک پوستی در یک دختر ۳ ساله

زهرا تفضلی^۱، معصومه حسینی‌نژاد^۲، سمانه برومند^۳، پوران لایق^۴، صادق وهابی املشی^۵، سمیه غنی‌زاده^۱

گزارش مورد

چکیده

مقدمه: کیست‌های برونکوژنیک در نتیجه‌ی رشد ایزوله‌ی درخت برونشیا و به طور معمول در مדיاستین ایجاد می‌شوند، اما ممکن است به طور نادر به صورت ساب‌کوتانه و یا پوستی تظاهر کنند. این مطالعه، به گزارش یک مورد از این بیماری در یک دختر ۳ ساله می‌پردازد.

گزارش مورد: یک دختر ۳ ساله با شکایت ندول هم‌رنگ پوست در ناحیه‌ی قدام قفسه‌ی سینه که از بدو تولد وجود داشته و با تشخیص کیست اپیدرموئید تحت جراحی رزکسیون کیست قرار گرفته بود، پس از یک سال با یک پلاک اولسره در محل جراحی قبلی به درمانگاه مراجعه کرد. در معاینه، پلاک اولسره در ناحیه‌ی میدکلاویکولار چپ بدون تندرین، ترشح، اریتم و لنفادنوپاتی ناحیه‌ای بود. بیوپسی انسزیونل به عمل آمد که مطالعه‌ی هیستوپاتولوژی نشان دهنده‌ی اپی‌تلیوم سنگفرشی غیر دیسپلازیک و پسودواستراتیفیه‌ی مژک‌دار تنفسی با ارتشاح پراکنده‌ی آماسی لنفومونوکلئر در استرومای زیرین بود که تشخیص کیست برونکوژنیک پوستی را تأیید کرد. بیمار جهت رزکسیون کامل ضایعه به جراح ارجاع شد، اما از ادامه‌ی درمان امتناع کرد.

نتیجه‌گیری: با این که در تشخیص توده‌های جلدی، ضایعات مرتبط با ساختارهای ضمایم پوست شایع‌تر می‌باشند، اما همواره لازم است در ضایعات با لوکالیزاسیون‌های خاص یا سیر عود کننده و غیر معمول، به موارد نادرتر نیز توجه کرد و نمونه‌ی بافتی را از نظر هیستوپاتولوژی بررسی نمود.

واژگان کلیدی: کیست برونکوژنیک؛ کیست اپیدرموئید؛ ندول؛ جراحی

ارجاع: تفضلی زهرا، حسینی‌نژاد معصومه، برومند سمانه، لایق پوران، وهابی املشی صادق، غنی‌زاده سمیه. گزارش یک مورد کیست برونکوژنیک پوستی در

یک دختر ۳ ساله. مجله دانشکده پزشکی اصفهان ۱۳۹۹؛ ۳۸ (۵۶۹): ۲۰۵-۲۰۱

مقدمه

در بافت‌شناسی و مطالعه‌ی میکروسکوپی کیست‌های برونکوژنیک، هر یک از بافت‌های تراشه و برونش نظیر بافت همبند فیبرو، غدد مترشحه‌ی سروزی-موکوسی، غضروف، عضله‌ی صاف و اپی‌تلیوم استوانه‌ای مطبق کاذب مژه‌دار که موکوس ترشح می‌کند، با اپی‌تلیوم سنگفرشی مطبق ممکن است دیده شوند (۳-۶، ۵).

کیست‌های برونکوژنیک به ندرت در ابتدای تولد علامت‌دار می‌شوند و به طور عمده، تشخیص تا سال‌های بعد که کیست علامت یا عارضه‌ای ایجاد کند، به تعویق می‌افتد. البته، گاهی ممکن است کیست به طور اتفاقی کشف شود. علائمی که به طور شایع‌تر ایجاد می‌شوند، عبارت از سرفه، تنگی نفس، درد قفسه‌ی سینه، تب، سیانوز، تنفس صدادار، دیسفاژی و استفراغ می‌باشند. اگر چه بسته

کیست‌های برونکوژنیک، ضایعات مادرزادی نادری هستند که در مراحل اولیه‌ی تکامل سیستم تنفسی بین هفته‌ی پنجم و شانزدهم جنینی از روده‌ی پیشین (Foregut) در ناحیه‌ی و نترال آن منشأ می‌گیرند و اغلب خوش‌خیم هستند. بیشتر به صورت کیست‌های گرد، منفرد و چند حفره‌ای با اندازه‌ای در حدود ۱۰-۲ سانتی‌متر بروز می‌کنند. محل شایع این کیست‌ها، در مדיاستن میانی، نزدیک به خط وسط و در ناحیه‌ی زیرین کارینا است، اما با شیوع کمتر در سایر نواحی نظیر پوست، بافت زیر جلدی، داخل یا زیر دیافراگم، پارانشیم ریه، حفره‌ی شکم، پری‌کارد و سخت‌شامه نیز دیده شده‌اند (۱-۴).

۱- دستیار تخصصی، گروه پوست، دانشکده‌ی پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران

۲- استادیار، گروه پوست، مرکز تحقیقات سالک جلدی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران

۳- استادیار، گروه پاتولوژی، دانشکده‌ی پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران

۴- استاد، گروه پوست، مرکز تحقیقات سالک جلدی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران

نویسنده‌ی مسؤول: سمیه غنی‌زاده؛ دستیار تخصصی، گروه پوست، دانشکده‌ی پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران

Email: ghanizadesomaye@gmail.com



شکل ۱. نمای بالینی کیست برونکوژنیک

بیمار با تشخیص های افتراقی گرانولوم جسم خارجی، عفونت مایکوباکتریوم های تیبیک و آتیبیک و یا لیشمانیا، تحت بیوپسی انسیزینال ضایعه قرار گرفت. گزارش پاتولوژی نمونه، مقاطعی از جدار کیست در قسمت هایی مفروش از اپی تلیوم سنگفرشی غیر دیسپلازیک و در قسمت هایی با اپی تلیوم مطابق کاذب مژک دار تنفسی و در استرومای زیرین با ارتشاح پراکنده ای آماسی لنفومونونوکلتردر جدار کیست را گزارش نمود (شکل ۲). گرانولوم دیده نشد. در رنگ آمیزی Ziehl-Neelsen، باسیل اسید فاست دیده نشد. بر مبنای گزارش پاتولوژی، تشخیص کیست برونکوژنیک برای بیمار مطرح شد و در نهایت، بیمار به جراح اطفال جهت حذف کامل ضایعه ارجاع گردید. با این حال، در پی گیری یک ساله، بیمار به دلیل عدم رضایت والدین به جراح مراجعه نکرده و درمان پی گیری نشده بود. اگر چه علائم و نشانه های مبنی بر عود یا پیشرفت ضایعه نیز در بیمار پس از یک سال مشاهده نشد.

به محل کیست، ممکن است مدت ها بدون علامت باشد. پس از تشخیص، در صورت عدم وجود شرایط خاص و ممنوعیت برای بیمار، برداشتن کیست ها از طریق جراحی توصیه می شود. جراحی در بسیاری موارد به تشخیص، تخفیف علائم و پیش گیری از عوارض به ویژه عفونت ثانویه و ایجاد کارسینوم کمک شایانی می کند (۱۰-۷، ۴-۳).

تاکنون موارد بسیار معدودی از کیست های برونکوژنیک و عوارض آن در ایران گزارش شده است. در سایر کشورها نیز گزارش از نوع پوستی این ضایعه به خصوص در ناحیه ی قدام قفسه ی سینه نادر بوده است. مطالعه حاضر، به معرفی یک مورد از کیست برونکوژنیک پوستی در ناحیه ی قدام قفسه ی سینه در دختر ۳ ساله می پردازد.

گزارش مورد

یک دختر ۳ ساله با یک پلاک اولسره در ناحیه ی فوقانی قفسه ی سینه در ناحیه ی میدکلاویکولار چپ به درمانگاه درماتولوژی اطفال بیمارستان امام رضا (ع) مراجعه نمود. والدین او از بدو تولد متوجه ندول هم رنگ پوست در این ناحیه شده بودند که ابتدای تولد هیچ گونه علامتی نداشته، اما اندازه ی آن با افزایش سن شیرخوار، به تدریج بزرگ تر شده و به حدود ۲ سانتی متر رسیده بود. حدود یک سال قبل از مراجعه، به دنبال ایجاد اریتم و ترشح در ندول پیش گفته، بیمار با مراجعه به پزشک عمومی تحت درمان با آنتی بیوتیک قرار گرفته و پس از کنترل عفونت اولیه، با تشخیص احتمالی کیست اپیدرموئید تحت جراحی و حذف ضایعه قرار گرفته بود، اما ضایعه ی حذف شده جهت مطالعه ی پاتولوژی ارسال نشده بود.

پس از جراحی، ترمیم محل به طور کامل صورت نگرفته و محل جراحی به صورت یک پلاک اولسره با ابعاد $2 \times 2/5$ سانتی متر مربع پایدار باقی مانده بود و به درمان های آنتی بیوتیک و حمایتی پاسخ خوبی نداده بود. در معاینه، کودک سالم و از نظر تکاملی طبیعی بود. یک پلاک اولسره با حدود مشخص در ناحیه ی فوقانی قفسه ی سینه در محل میدکلاویکولار چپ داشت که تندرست، درد، ترشح چرکی و اریتم پوست اطراف نداشت (شکل ۱).

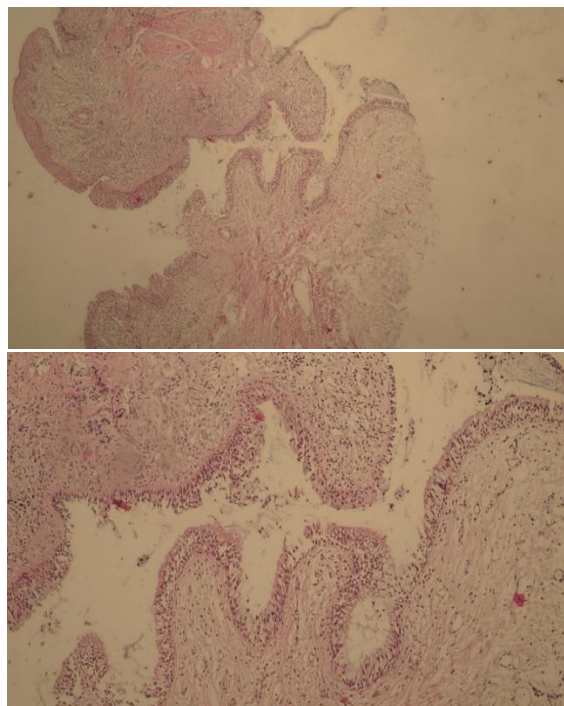
بیمار، لنفادنوپاتی منطقه ای و سابقه ای از سرفه یا علائم تنفسی یا سایر علائم سیستمیک نداشت و شرح حالی از بیماری مزمن و یا بستری در بیمارستان ارائه نکرد. اسمیر ضایعه از نظر جسم لیشمن منفی بود. اسمیر و رنگ آمیزی گرم نیز منفی بود. سابقه ی سل در کودک و نزدیکان وی وجود نداشت و آزمایش Tuberculosis skin test (PPD) منفی بود.

قسمت های قدامی راه هوایی هنگام بسته شدن صفحات مزانشیمال راست و چپ استرنوم گیر افتاده و جدا می شود (Pinch off). کیست های برونکوژنیک پوستی، به نظر می رسد در اغلب موارد از تئوری دوم تبعیت می کنند (۱۳، ۹).

کیست های برونکوژنیک پوستی به ترتیب در سوپراسترنال ناچ، پاراسترنال، گردن و اسکاپولا قرار دارند (۱۲). همچنین، گزارش هایی از قرارگیری آن ها در محل های غیر معمول مثل چانه، نوک زبان و جدار قدامی شکم نیز وجود دارد (۱۴-۱۳). بیمار این مطالعه، با توجه به این که دختر بود و محل آناتومیک ضایعه ای میدکلاویکول می باشد، جزء موارد بسیار نادر تظاهرات کیست برونکوژنیک پوستی است.

کیست برونکوژنیک پوستی، اغلب به صورت تورم یا ندول هم رنگ پوست بدون علامت و یا همراه با یک سینوس Tract در سطح اپی درم و به ندرت حتی به صورت پدانکوله ظاهر می شود. برخی موارد مجرای فیستولمانندی دارند که حاوی ترشحات موکوئیدی است. تشخیص پاتولوژیک آن با دیدن ساختارهای تراکتوبرونشیال در دیواره کیست مشخص می شود. اپی تلیوم پسودواستراتیفیهی مژکدار تنفسی، غضروف هیالین، سلول های عضله صاف، فیبرهای الاستیک، بافت فیبروزه، سلول های نورال و غدد سروموکوزی در اغلب موارد دیده می شود. فولیکول های لنفوئیدی در موارد عفونت مزمن ممکن است مشاهده شود (۴).

تشخیص های افتراقی کیست برونکوژنیک شامل ضایعات تومورال مانند ترانوما، لیوبلاستوم، کارسینوم سلول سنگفرشی، کارسینوم سلول بازال و ضایعات کیستیک مانند کیست تیروگلو سال، کیست برونکیال، کیست اپیدرموئید، کیست درموئید، کیست تریکلمال و کیست کوتانوس Clinical است (۸). از بین تشخیص های پیش گفته، افتراق کیست های برونکوژنیک و برونکیال چالش برانگیزتر است؛ چرا که یافته های هیستوپاتولوژیک آن ها هم پوشانی زیادی دارد و در مورد معیارهای افتراق دهنده آن ها، توافق نظر وجود ندارد (۱۶-۱۵، ۱۲). به طور کلاسیک، برونکوژنیک کیست، حاوی اپی تلیوم تنفسی مژکدار و برونکیال کیست در بیش از ۹۰ درصد موارد با اپی تلیوم مطبق مفروش شده است. بافت لنفوئید در بیش از ۹۰ درصد کیست های برونکیال مشاهده می شود؛ در حالی که به طور کلاسیک کیست برونکوژنیک بافت لنفوئید ندارد. عضله صاف در ۷۰ درصد موارد کیست برونکوژنیک وجود دارد، اما به ندرت در کیست برونکیال دیده می شود (۱۷). شاید بتوان گفت پذیرفته ترین وجهی افتراق این دو کیست از یکدیگر، تفاوت در محل آناتومیک آن ها باشد. کیست برونکیال در قدام عضله ای استرنوکلیدوماستوئید دیده می شود و کیست برونکوژنیک در میدلاین قدامی دیده می شود (۱۷، ۱۲).



شکل ۲. نمای پاتولوژیک کیست برونکوژنیک: جدار کیست مفروش از اپیتلیوم استوانه ای پسودواستراتیفیه و در زیر آن ارتشاح پراکندهی آماسی بدون ایجاد تجمعات واضح لنفاوی دیده می شود (رنگ آمیزی هماتوکسیلین - اتوزین و بزرگنمایی ۱۰× و ۴۰×)

بحث

کیست برونکوژنیک، یک آنومالی کونژنیتال با منشأ فورگات جنینی می باشد. در هفته ی ششم جنینی، فورگات به دو بخش پشتی (ازوفاگوس) و شکمی (تراکتال) تقسیم می شود. بخش شکمی (تراکتال) در طی سه هفته ی بعد (هفته ی دهم) تبدیل به درخت تراکتوبرونشیال یا تنفسی می شود. بافت اولیه ی تنفسی، ممکن است از منشأ اولیه ی خود جدا و منجر به تشکیل کیست های برونکوژنیک شود (۱۱، ۱). این کیست ها، اغلب در مدیاستن قرار دارند، هر چند به طور غیر معمول در پوست و بافت زیرجلدی نیز تشکیل می شوند (۱۲). همان طور که در گزارش بیمار آمده است، در این مطالعه، کیست پوستی مشاهده گردید. انسیدانس دقیق کیست برونکوژنیک پوستی مشخص نیست، اما جمعیت مذکر، ۴ برابر مؤنث درگیر می شود (۸). اگر چه در مطالعه ی حاضر، این بیماری در یک دختر ۳ ساله دیده شد.

دو تئوری اصلی از نظر جنین شناسی در خصوص تشکیل کیست های برونکوژنیک پوستی وجود دارد. تئوری اول، مهاجرت کیست اینترانوراسیک به پوست و یا بافت زیر جلدی را مطرح می کند و تئوری دوم یا تئوری Pinch off پیشنهاد می دهد که بخشی از

رو، به طور معمول، حذف کامل ضایعه پس از تشخیص توصیه می‌گردد (۱۲). احتمال عود ضایعه در صورت حذف ناکامل آن مشابه وضعیت بیمار مورد مطالعه وجود دارد.

نتیجه‌گیری

با این که در تشخیص توده های پوستی، ضایعات مرتبط با ساختارهای ضمایم پوست شایع تر می‌باشند، اما لازم است همواره در ضایعات با لوکالیزاسیون‌های خاص یا سیر عود کننده و غیر معمول، به موارد نادرتر نیز توجه کرد و نمونه‌ی بافتی را از نظر هیستوپاتولوژی بررسی نمود.

تشکر و قدردانی

از پرسنل درمانگاه پوست بیمارستان الزهرای (س) اصفهان که در گردآوری اطلاعات شرکت داشتند، قدردانی می‌گردد.

مسأله‌ی بحث برانگیزی که در کیست‌های برونکوژنیک وجود دارد، ارزیابی بیمار از نظر گسترش مدیاستینال است. در بیشتر موارد، گسترش اینتراتوراسیک وجود ندارد و اغلب نویسندگان عقیده دارند که نیازی به ارزیابی‌های وسیع رادیولوژی مثل سی تی اسکن در غیاب علائم تنفسی نیست (۴). در مقابل برخی از پزشکان انجام رادیوگرافی قفسه‌ی سینه، Magnetic resonance imaging (MRI) یا سونوگرافی را جهت ارزیابی از نظر گسترش به داخل توراکس توصیه می‌کنند (۱۲). در بیمار مورد مطالعه نیز با توجه به این که علائم تنفسی و شرح حالی از سرفه نداشت، ارزیابی بیشتری انجام نشد. کیست‌های برونکوژنیک پوستی، به طور تقریبی همیشه بدون علامت هستند، اما با این حال، خطر عوارضی مثل عفونت و یا تغییرات بدخیمی وجود دارد. کارسینومای موکوپیدرموئید و ملانوما در مناطق کیست‌های برونکوژنیک گزارش شده است (۷، ۱۸). از این

References

- Desforges G. Primitive foregut cysts. *Ann Thorac Surg* 1967; 4(6): 574-7.
- Bagwell CE, Schiffman RJ. Subcutaneous bronchogenic cysts. *J Pediatr Surg* 1988; 23(11): 993-5.
- Sarper A, Ayten A, Golbasi I, Demircan A, Isin E. Bronchogenic cyst. *Tex Heart Inst J* 2003; 30(2): 105-8.
- Manchanda V, Mohta A, Khurana N, Das S. Subcutaneous bronchogenic cyst. *J Cutan Aesthet Surg* 2010; 3(3): 181-3.
- Aktogu S, Yuncu G, Halilcolar H, Ermete S, Buduneli T. Bronchogenic cysts: Clinicopathological presentation and treatment. *Eur Respir J* 1996; 9(10): 2017-21.
- Limaiem F, Ayadi-Kaddour A, Djilani H, Kilani T, El Mezni F. Pulmonary and mediastinal bronchogenic cysts: A clinicopathologic study of 33 cases. *Lung* 2008; 186(1): 55-61.
- Tanita M, Kikuchi-Numagami K, Ogoshi K, Suzuki T, Tabata N, Kudoh K, et al. Malignant melanoma arising from cutaneous bronchogenic cyst of the scapular area. *J Am Acad Dermatol* 2002; 46(2 Suppl Case Reports): S19-S21.
- Park HS, Son H, Kang MJ. Cutaneous bronchogenic cyst over the sternum- a case report. *Korean J Pathol* 2004; 38: 33-6.
- Ozel SK, Kazez A, Koseogullari AA, Akpolat N. Scapular bronchogenic cysts in children: case report and review of the literature. *Pediatr Surg Int* 2005; 21(10): 843-5.
- Cohn JE, Rethy K, Prasad R, Mae PJ, Annunzio K, Zwillenberg S. Pediatric Bronchogenic Cysts: A Case Series of Six Patients Highlighting Diagnosis and Management. *J Invest Surg* 2018; 1-6. [Epub ahead of print].
- Grafe WR, Goldsmith EI, Redo SF. Bronchogenic cysts of the mediastinum in children. *J Pediatr Surg* 1966; 1(4): 384-93.
- Zvulunov A, Amichai B, Grunwald MH, Avinoach I, Halevy S. Cutaneous bronchogenic cyst: delineation of a poorly recognized lesion. *Pediatr Dermatol* 1998; 15(4): 277-81.
- Miller OF 3rd, Tyler W. Cutaneous bronchogenic cyst with papilloma and sinus presentation. *J Am Acad Dermatol* 1984; 11(2 Pt 2): 367-71.
- Kun-Darbois JD, Breheret R, Bizon A, Pare A, Laccourreye L. Bronchogenic cyst of the tip of the tongue: report of two cases. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis* 2015; 132(1): 49-51.
- Beyer LG, English JC, III, Halbach DP. Presternal bronchogenic sinus with predunculated lymphoid aggregate. *Am J Dermatopathol* 2000; 22(1): 79-82.
- Muezzinoglu B, Sozubir S, Tugay M, Guvenc BH. Histological and clinical overlapping. *Am J Dermatopathol* 2001; 23(3): 278-9.
- Zvulunov A, Avinoach I. Branchial cleft anomalies and bronchogenic cysts are two unrelated disorders of embryogenesis. *Pediatr Dermatol* 2000; 17(4): 332-3.
- Tanaka M, Shimokawa R, Matsubara O, Aoki N, Kamiyama R, Kasuga T, et al. Mucoepidermoid carcinoma of the thymic region. *Pathol Int* 1982; 32(4): 703-12.

Cutaneous Bronchogenic Cyst in a 3-Year-Old Girl: A Case Report

Zahra Tafazzoli¹, Masoumeh Hosseininezhad², Samaneh Boroumand³, Poursan Layegh⁴,
Sadegh Vahabi-Amlashi², Somayeh Ghanizadeh¹

Case Report

Abstract

Background: Bronchogenic cysts commonly occur isolated in the bronchial tree, typically in the mediastinum. However, subcutaneous and cutaneous forms can rarely be found. Herein, we present a case of a 3-year-old girl with this lesion.

Case Report: A 3-year-old girl presented to the clinic with an ulcerated plaque on her anterior chest wall. She mentioned a history of a skin-colored nodule on the same location that had been present since her birth, and was excised one year ahead with the diagnosis of epidermoid cyst. On examination, an ulcerative plaque was evident on the left midclavicular area with no tenderness, discharge, erythema, or regional lymphadenopathy. Incisional biopsy was performed. Histopathological study revealed non-dysplastic, squamous, pseudo-stratified, ciliated respiratory epithelium with diffuse inflammatory lymphomononuclear infiltration in the lower stroma, confirming the diagnosis of cutaneous bronchogenic cysts. The patient was referred for surgical resection of the lesion, but refused to continue the treatment.

Conclusion: Although lesions associated with skin appendages are more common in the diagnosis of subcutaneous masses, less frequent diagnoses should also be in mind for lesions with special localization or recurrent and unusual course, and histopathological examination of tissue specimens should be performed.

Keywords: Bronchogenic cyst; Epidermoid cyst; Nodule; Surgery

Citation: Tafazzoli Z, Hosseininezhad M, Boroumand S, Layegh P, Vahabi-Amlashi S, Ghanizadeh S. **Cutaneous Bronchogenic Cyst in a 3-Year-Old Girl: A Case Report.** J Isfahan Med Sch 2020; 38(569): 201-205.

1- Resident, Department of Dermatology, School of Medicine, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran

2- Assistant Professor, Department of Dermatology, Cutaneous Leishmaniasis Research Center, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran

3- Assistant Professor, Department of Pathology, School of Medicine, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran

4- Professor, Department of Dermatology, Cutaneous Leishmaniasis Research Center, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran

Corresponding Author: Somayeh Ghanizadeh, Resident, Department of Dermatology, School of Medicine, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran; Email: ghanizadesomaye@gmail.com