



BRONHOALVEOLARNI KARCINOM U JUVENILNOM DOBU
PREZENTOVAN KAO SPONTANI PNEUMOTORAKS

JUVENILE BRONCHOALVEOLAR CARCINOMA PRESENTED AS A
SPONTANEOUS PNEUMOTHORAX

Dejan Đurić, Ivan Kuhajda, Miloš Koledin, Mišel Milošević, Milorad Bijelović, Dejan Ilinčić,
Ištvan Klem, Aleksandar Milovančev

Institut za plućne bolesti, Sremska Kamenica

SAŽETAK

Slučaj bronhoalveolarnog karcinoma gornjeg režnja levog plućnog krila, prezentovanog kao spontani pneumotoraks, kod pacijenta starog 14 godina. Urađena je lobektomija gornjeg režnja levog plućnog krila.

Ključne reči: *bronhoalveolarni karcinom, pneumotoraks, juvenilno doba*

SUMMARY

This is a case report of a 14-year old patient with a bronchoalveolar carcinoma in the upper lobe of the left lung, presented as a spontaneous pneumothorax. Lobectomy of the left lung upper lobe was performed.

Key words: *bronchoalveolar cancer, pneumothorax, juvenile age*

Pneumon, 2006; Vol 43

Prim. mr sci med. Dejan Đurić,
Klinika za grudnu hirurgiju, Institut za plućne bolesti,
Sremska Kamenica

UVOD

Primarni tumori pluća su izuzetno retki u juvenilnom dobu. Tačan broj i incidencu javljanja teško je proceniti s obzirom da se uglavnom objavljuju pojedinačni slučajevi, najčešće kao prikaz slučaja. Takođe, često se inflamatorni pseudotumori protumače kao primarni tumori pluća. Spontani pneumotoraks je retka manifestacija primarnog karcinoma pluća. Bronhoalveolarni karcinom predstavlja visoko diferentovani adenokarcinom, mada ga mnogi patolozi, zbog svog specifičnog rasta i neuobičajnog ponašanja, svrstavaju u posebnu grupu.

Pacijent star 14 godina, nepušač, hospitalizovan u Institutu za plućne bolesti u Sremskoj Kamenici zbog kliničkih i radioloških znakova pneumotoraksa levo, koji je anamnestički nastao spontano. Tegobe u vidu bolova u levom hemitoraksu, koji su se pojačavali pri udisaju, traju nedelju dana pred prijem u bolnicu. Nema podataka o ranijim bolestima respiratornog sistema kao ni malignih bolesti u porodici. Nakon odgovarajuće preoperativne pripreme operisan u opštoj anesteziji 06.11.2003. godine kada je urađena videoasistirana torakoskopija, atipična resekcija fibrozno izmenjenog vrha levog plućnog krila sa parcijalnom pleurektomijom i abrazijom preostale parijetalne pleure levo. Postoperativni tok protekao uredno. Definitivnim patohistološkim pregledom reseciranog dela gornjeg režnja levog plućnog krila, dokazano da se radi o bronhoalveolarnom karcinomu. Patohistološki nalaz: Primljeni isečak pluća veličine 7x1 cm. U srednjem delu isečka, ispod pleure, nalazi se čvor sivo-smeđeg, srednje čvrstog, nejasno ograničenog tkiva promera 0,8x0,6 cm. Histološki, neposredno ispod pleure, nalazi se tumorsko tkivo, visoko cilindrične ćelije vakuolisane, svetle, alcian-pozitivne citoplazme i pretežno bazalno postavljenih, okruglastih, hiperhromatičnih jedara koje oblažu alveolarne pregrade. Lumeni alveola u tumoru, i u širem sloju oko tumora, ispunjeni su sluzi i makrofagima. Tumor se ne nalazi u blizini ruba resekcije. Urađena bronhoskopija, endoskopski nalaz uredan, u materijalima uzetim tokom bronhoskopije nisu nađene maligne ćelije. 18.11.2003. godine bolesnik operisan u opštoj anesteziji, kada je urađena leva anterolateralna torakotomija, lobektomija gornjeg režnja levog plućnog krila uz limfadenektomiju hilarnih i interlobarnih limfnih čvorova, te drenaža sa dva drena. Postoperativni tok protekao uredno, rana zarasla *per primam*, drenovi odstranjeni. Definitivni patohistološki nalaz: u parenhimu gornjeg režnja levog plućnog krila nisu videne patološke promene,

bronh na rezu je bez tumora, u pregledanim limfnim čvorovima nema tumorskog tkiva. Prema TNM klasifikaciji tumor se može svrstati u T1N0 Ia stadijum. Kontrolni radiogram grudnog koša zadovoljavajući, u skladu sa načinjenom resekcijom. Kontrolni laboratorijski nalazi u granicama referentnih vrednosti. Pacijent subjektivno i objektivno u dobrom opštem stanju je otpušten sedmog postoperativnog dana. Zbog literaturnih podataka (1) da u ovako ranom dobu, ovaj tip karcinoma može imati primarno ishodište u abdomenu, pacijent je premešten na Institut za zaštitu majke i detata radi daljeg ispitivanja. Urađena je kompletna dijagnostika abdominalnih organa (gastroduodenoskopija, kolonoskopija, CT i ultrazvuk abdomena) koja je isključila prisustvo tumora u abdomenu. Nakon dve godine, hospitalizovan na Institutu za plućne bolesti radi redovne onkološke kontrole. Urađena kontrolna bronhoskopija, endoskopski nalaz odgovara stanju nakon lobektomije gornjeg režnja levog plućnog krila, bez drugih patoloških promena, u uzetim materijalima nisu videne maligne ćelije. Kontrolni CT toraksa je urednog nalaza.

DISKUSIJA

Prema SZO bronhoalveolarni karcinom je izdvojen iz grupe adenokarcinoma zbog svog specifičnog rasta, neuobičajnog ponašanja i loše prognoze kod difuzne forme. Predstavlja 1.5% do 7% svih karcinoma bronha, sa prosečnim javljanjem od oko 4%, mada je primećen značajan porast javljanja ovog karcinoma čak i do 24% (2). Najčešće se javlja u dobi između 54-65 godine života (3). Može se javiti u solitarnoj formi (43%), multinodularnoj ili multicentričnoj (30%) i difuznoj ili pneumoničnoj formi (27%) (4). Najbolju prognozu ima solitarna forma. U preko 66% slučajeva solitarne forme, karcinom je prilikom dijagnostikovanja manji od 3 cm. Najčešće se nalazi periferno, subpleuralno, karakteriše se očuvanom arhitektonikom alveola, a krvarenje, nekroza i stvaranje kavitacija se nikad ne javlja (2). Izuzetno retko se širi van plućnog krila sa incidencom javljanja metastaza u limfnim čvorovima od oko 7% (3). Singh i saradnici (5) su 1981. godine dali kriterijume za postavljanje dijagnoze bronhoalveolarnog karcinoma: odsustvo primarnog adenokarcinoma u drugom organu, odsustvo centralnog adenokarcinoma bronha, periferna lokalizacija, rast unutar alveolarnih septi, karakteristična histološka građa. Histološki, tumor može biti mucinozni i ne mucinozni. Ne mucinozni se dalje deli na sklerotski tip i ne sklerot-

ski tip (6,7). Mucinozni tip karcinoma je često udružen sa kongenitalnom cističnom adenomatoidnom malformacijom kada se i otkriva u mladoj dobi (između 11 i 42 godine života) (7,8,9). Sastoji se od tri tipa ćelija: Klara ćelija, pneumocita tipa II i u slučaju mucinozne forme, mucinoznih ćelija. Ne postoji jasna povezanost između tipa ćelija i radiološke prezentacije karcinoma, mada se mucinozni tip najčešće javlja u multicentričnoj formi (10). Klinička simptomatologija bronhoalveolarnog karcinoma zavisi od forme tumora. Solitarna forma je najčešće asimptomatska, a u slučaju multinodularne ili difuzne forme najčešće se javlja kašalj, otežano disanje, bol u grudima, hemoptizije, gubitak na telesnoj masi i povećana produkcija sputuma (4). Petogodišnje preživljavanje kod solitarne forme bronhoalveolarnog karcinoma je izuzetno dobro i iznosi oko 81%.

Najčešće tumorske promene u plućima u juvenilnom periodu su metastatski tumori i to *Wilmsovog* tumora, osteogenog sarkoma, sarkoma mekih tkiva i hepatoblastoma (11). Bronhijalni adenom i karcinoid predstavljaju najčešće primarne tumore pluća u juvenilnom periodu a adenokarcinom i nediferentovani karcinom su najčešći primarni karcinomi pluća (12).

Spontani pneumotoraks je retka manifestacija primarnog karcinoma pluća. Češće se javlja kod sarkoma i metastatskih tumora. Uzrok nastanka pneumotoraksa može biti posledica: direktne invazije tumora u pleuru, rupture dilatiranih alveola koje se nalaze distalno od karcinoma, rupture alveola koje su postale distendirane kao posledica kompenzacije atelektaze zbog obstrukcije karcinomom ili je uzrok pneumotoraksa nepoznat (15). U slučaju malog karcinoma, manjeg od 1 cm., dijagnoza karcinoma se dobija tokom operacije za koju se odlučuje najčešće zbog produženog gubitka vazduha preko torakalnog drena. Na osnovu literalnih podataka (13,14,16,17,18,19), spontani pneumotoraks kao prva manifestacija primarnog karcinoma pluća, najčešće se javlja kod osoba muškog pola, prosečne starosti oko 65 godina.

Sličan slučaj spontanog pneumotoraksa udruženog sa bronhoalveolaranim karcinomom pluća u 14-godišnjeg dečaka, u svetskoj literaturi, po našim saznanjima nije objavljen.

LITERATURA

1. Travis W, Brambilla E, Muller-Hermlink K, Harris C: World Health Organisation Classification of Tumors, Pathology and genetics of tumours of the lung, pleura, thymus and heart, IARC press. 38-43; 2004.
2. Barsky S, Cameron R, Osann K, Tomita D, Holmes E: Rising incidence of bronchioalveolar lung carcinoma and its unique clinicopathological features, *Cancer*, 73:1163-70; 1994.
3. Daly R, Trasaer V, Pairolo P, Murtaugh P, Huang M, Allen N, Colby T: Bronchioalveolar carcinoma: factors affecting survival, *Ann Thorac Surg*, 51:368-77, 1991.
4. Adler B, Padley S, Miller R, Muller N: High resolution CT of bronchioalveolar carcinoma, *Am J Radiol*, 159:275-77; 1992.
5. Singh G, Katyal S, Torikata C: Carcinoma of type II pneumocytes: immunodiagnosis of a subtype of bronchioalveolar carcinoma. *Am J Pathol* 102:95, 1981.
6. Clayton F: Bronchioalveolar carcinomas: cell types, patterns of growth and prognostic correlates. *Cancer*; 57:1555, 1986.
7. Dumont P, Gasser B, Rouge C, Massard G, Wihlm J: Bronchioalveolar carcinoma. Histopathological study of evolution in a series at 105 surgically treated patients. *Chest*, 113:391-95; 1998.
8. Granata C, Gambini C, Balducci T, Toma P, Michelazzi A, Conte M, Jasonni V: Bronchioalveolar carcinoma arising in congenital cystic adenomatoid malformation in a child: a case report and review on malignancies originating in congenital cystic adenomatoid malformation. *Ped Pulmonol*, 25:62-66; 1998.
9. Ohye R, Cohen D, Caldwell S, Qualman S: Pediatric bronchioalveolar carcinoma: a favorable pediatric malignancy? *J Pediatr Surg* 33:730-32; 1998.
10. Albertine K, Steiner R, Radack D, Golding D, Peterson D, Cohn H, Farber J: Analysis of cell type and radiographic presentation as predictors of the clinical course of patients with bronchioalveolar cell carcinoma, *Chest*, 113:997-1006; 1998.
11. Egli K, Newmann B: Nodules, masses and pseudotumors in pediatric lung: *Radiol Clin North Am*, 31(3):651-66; 1993.
12. Hartman G, Shochat S: Primary pulmonary neoplasms of childhood: a review, *Ann Thorac Surg*, 36(1):108-19; 1983.

13. Galbis Caravajal J, Mafe Medueno J, Baschwitz Gomez B, Perez Carbonell A, Rodrigez Paniagua J: Spontaneous pneumothorax as the first sign of pulmonary carcinoma, *Arch Bronchoneumol*, 37(9):397-400; 2001.
14. Reguerio F, Arnau A, Perez D, Canizares M, Martinez P, Canto A: Pneumothorax as the clinical presentation of bronchogenic carcinoma. A report of 3 cases, *Arch Bronchoneumol*, 36(1):55-7; 2000.
15. Tsukamoto T, Satoh T, Zamada K, Nagasawa M.: Primary lung cancer presenting as spontaneous pneumothorax, *Nihon Kzobu Shikkan Zasshi*, 33(9):936-9; 1995.
16. Ito Y, Ohta S, Nagashima Z, Eto T, Honda A. A case of primary lung cancer presenting as pneumothorax, *Kyobu Geka*, 51(2):150-3; 1998.
17. Ojika T, Mukouyama N, Sakou T, Hattori N, Suzuki K, Achiwa H, Maeda H, Ogasawara T.: Three cases of primary lung cancer unexpectedly discovered during the operation of pneumothorax, *Kyobu Geka*, 50(10):844-7; 1997.
18. Kawabata H, Arimoto T, Fujii S, Takesako T, Hara H.: Lung cancer detected in a patient under 40 treated for pneumothorax, *Nihon Kokyuki Gakkai Zasshi*, 37(1):51-4; 1999.
19. Mathew A, Roy T, Ossorio M, Fields C: Pneumothorax: an unusual presentation of primary bronchogenic neoplasm, *J Ky Med Assoc*, 89(1):22-4; 1991.