

PNEUMOLOGIA

portuguese journal of pulmonology

www.revportpneumol.org



CASO CLÍNICO

Leiomioma endobrônquico primário – ressecção laser endoscópica

A.P. Vaz^{a,*}, A. Magalhães^a, C. Bartosch^b, G. Fernandes^c e A. Marques^c

^a Serviço de Pneumologia, Hospital São João, Porto, Portugal

^b Serviço de Anatomia Patológica, Hospital São João, Porto, Portugal

^c Serviço de Pneumologia, Hospital São João, Porto, Portugal, Faculdade de Medicina da Universidade do Porto, Porto, Portugal

Recebido a 22 de outubro de 2010; aceite a 6 de janeiro de 2011

Disponível na Internet a 14 abril 2011

PALAVRAS-CHAVE

Leiomioma;
Pulmão;
Ressecção laser

Resumo Os leiomiomas representam menos de 2% de todos os tumores benignos do pulmão. Apenas um terço tem origem endobrônquica, geralmente apresentando-se como lesões primárias solitárias condicionando obstrução da via aérea. A literatura sobre os leiomiomas endobrônquicos primários é portanto escassa, incluindo o relato de pouco mais de 100 casos.

Descreve-se o caso de uma doente de 44 anos com sintomas sugestivos de asma brônquica e uma pneumonia obstrutiva no contexto de um leiomioma do brônquio principal direito, que foi removido com sucesso utilizando o Nd:YAG laser através da broncoscopia rígida.

Pretende-se realçar a singularidade do diagnóstico de um leiomioma endobrônquico primário e a relevância da ressecção laser no seu tratamento definitivo. Uma breve revisão sobre os leiomiomas pulmonares é apresentada ao longo do texto.

© 2010 Sociedade Portuguesa de Pneumologia. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos os direitos reservados.

KEYWORDS

Leiomyoma;
Lung;
Laser resection

Primary endobronchial leiomyoma – endoscopic laser resection

Abstract Leiomyomas account for less than 2% of all benign lung tumors. Only one third is endobronchial in location, usually presenting as primary solitary lesions and airway obstruction findings. Literature on primary endobronchial leiomyomas is therefore scarce, with a few more than 100 cases being reported.

We describe a case of a 44-year-old female that presented with bronchial asthma like symptoms and an obstructive pneumonia, due to a right main bronchus primary leiomyoma that was successfully resected using Nd:YAG laser through rigid bronchoscopy.

Purpose of this case is to enhance the rarity of primary endobronchial leiomyoma diagnosis and report the relevance of laser resection in its definitive treatment. A brief review on lung leiomyomas is discussed over the text.

© 2010 Sociedade Portuguesa de Pneumologia. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

* Autor para correspondência.

Correio eletrónico: vaz.anapaula@gmail.com (A.P. Vaz).

Introdução

Os leiomiomas são tumores benignos raros com origem nas células musculares lisas. De todos os tumores ressecados cirurgicamente do pulmão, aproximadamente 1,9% são benignos¹ e destes, menos de 2% são leiomiomas^{2,3}.

A maioria dos leiomiomas do pulmão, aproximadamente 51%, localiza-se no parênquima, 33% são endobrônquicos e os restantes 16% traqueais³.

Nas mulheres, os leiomiomas parenquimatosos podem ocorrer como lesões pulmonares primárias ou como resultado do crescimento extra-uterino benigno de células musculares lisas, uma entidade designada por leiomioma metastizante benigno (LMB)⁴. Os leiomiomas endoluminais são usualmente descritos como lesões primárias solitárias.

A literatura sobre os leiomiomas endobrônquicos primários é escassa, com uma revisão de 2009 a incluir o relato de apenas 108 casos⁵. Apesar da raridade e manifestações clínicas inespecíficas poderem colocar desafios diagnósticos, um prognóstico excelente pode ser obtido quando a remoção completa usando técnicas broncoscópicas é exequível.

Descreve-se o caso de uma ressecção laser bem sucedida de um leiomioma do brônquio principal direito (BPD), condicionando sintomas sugestivos de asma brônquica e uma pneumonia obstrutiva numa mulher de meia-idade.

Caso clínico

Uma mulher de 44 anos, de raça branca e nacionalidade Portuguesa apresentou um quadro clínico de tosse não produtiva e pieira ocasional com três meses de evolução. Dada a suspeita de asma brônquica, encontrava-se medicada com terapêutica inalatória, embora sem melhoria clínica. Referia, ainda, dispneia de esforço com início nas últimas duas semanas, negando outros sintomas, nomeadamente constitucionais. Não apresentava antecedentes de relevo, nomeadamente patologia ginecológica ou hábitos tabágicos.

Ao exame físico, de realçar uma diminuição dos sons respiratórios no hemitórax direito.

O estudo analítico mostrou uma ligeira elevação da proteína C reactiva (4,7 mg/dl). A radiografia torácica sugeriu a presença de uma pneumonia obstrutiva, que foi confirmada pelos achados da tomografia computadorizada (TC) demonstrando uma massa no BPD e uma consolidação com broncograma aéreo no lobo médio com um pequeno derrame

pleural homolateral loculado (fig. 1A e B). A broncofibroscopia revelou um tumor polipóide de superfície lisa e vascularizada no BPD, junto à carina principal, com uma base de inserção limitada, emergindo da parede brônquica medial, condicionando obstrução de mais de 90% do seu lúmen (fig. 2A e B).

A excisão da lesão foi efectuada utilizando a fotocoagulação com neodímio: yttrium-aluminum-garnet (Nd:YAG) laser com auxílio da remoção mecânica através da broncoscopia rígida (BR), obtendo-se repermeabilização total do BPD numa sessão (fig. 2B). Não foram documentadas complicações decorrentes do procedimento.

O exame histopatológico foi consistente com o diagnóstico de um leiomioma (fig. 3) mostrando células fusiformes de citoplasma eosinofílico, sem atípias, áreas de necrose ou actividade mitótica e com imunoreactividade difusa para a actina e desmina e fraca para a vimentina no estudo imunohistoquímico.

Foi igualmente excluído envolvimento de outros órgãos, nomeadamente do útero, o que foi confirmado pelo exame e ecografia ginecológicos e pela ausência de receptores de estrogénios na peça histológica.

Entretanto, constatou-se resolução clínica e radiológica. A espirometria solicitada no follow-up da doente não mostrou alterações; ao fim de dois anos, esta encontra-se assintomática e sem sinais endoscópicos de recidiva.

Discussão

Os leiomiomas endobrônquicos são tumores benignos raros do pulmão, usualmente apresentando-se como lesões primárias solitárias com origem no músculo liso da árvore brônquica.

Embora os leiomiomas pulmonares, em geral, sejam descritos como mais frequentes no sexo feminino, a revisão de 108 leiomiomas endobrônquicos primários demonstrou que, nesta localização, ambos os sexos são igualmente afectados⁵. Para além do referido, estes ocorrem indiferentemente em qualquer local na árvore brônquica, sendo mais comuns em doentes de meia-idade (35 ± 3 anos)⁵. A maioria dos doentes com leiomiomas endobrônquicos apresenta sintomas respiratórios decorrentes da obstrução parcial ou total das vias aéreas³. No caso apresentado, a tosse foi o sintoma mais comum; sibilos e dispneia também estiveram presentes, quadro clínico erroneamente interpretado como asma brônquica⁶. A atelectasia obstrutiva

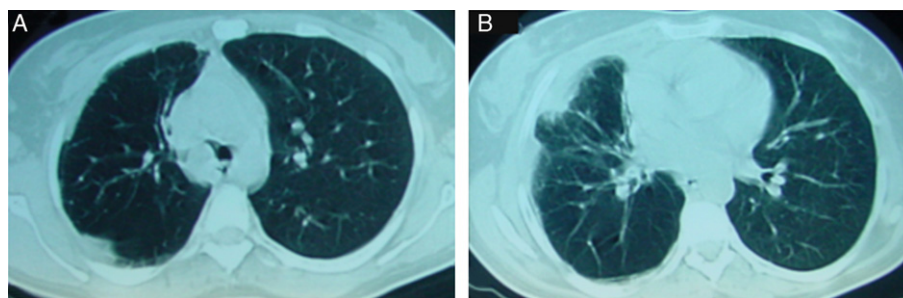


Figura 1 Tomografia computadorizada do tórax.

Opacidade bem definida condicionando oclusão do brônquio principal direito (A). Consolidação no lobo médio com broncograma aéreo e um derrame pleural homolateral loculado (B).

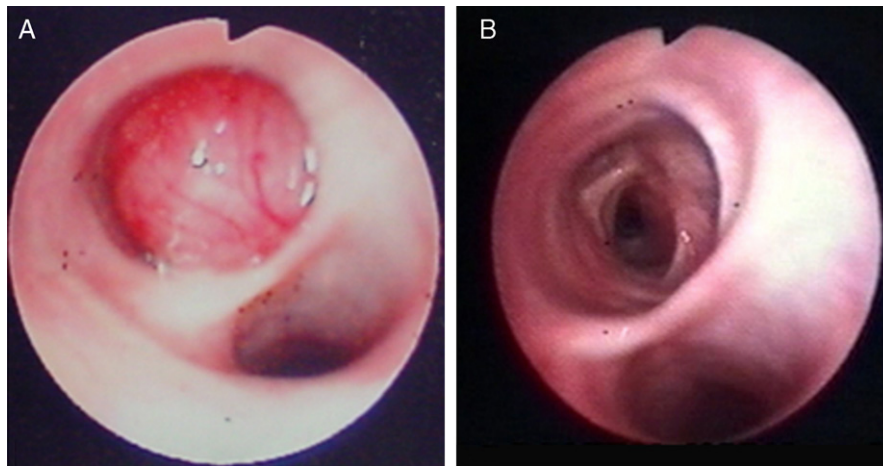


Figura 2 Broncospopia flexível. Brônquio principal direito antes (A) e depois da ressecção laser do leiomioma (B).

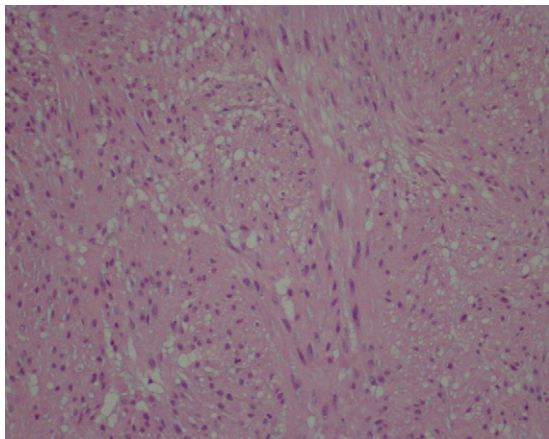


Figura 3 Estudo histopatológico (Hematoxilina e eosina, 20×). Células fusiformes com núcleos alongados e citoplasma eosinofílico, sem atípias, áreas de necrose ou actividade mitótica.

e a pneumonia surgiram conseqüentemente na história natural destas lesões endoluminais oclusivas³. Outros relatos de casos descrevem a ocorrência de bronquiectasias, hemoptises e mesmo pneumotóraces resultantes do aprisionamento de ar pela lesão endoluminal⁷. Embora a radiologia possa ser inespecífica, a TC do tórax foi útil ao revelar o tumor endoluminal e permitir esclarecer os achados sugestivos de obstrução brônquica. O diagnóstico final foi obtido com a visualização directa por broncospopia e biópsia da lesão. De realçar a importância da diferenciação entre um leiomioma primário pulmonar e um LMB ou um leiomiossarcoma de baixo grau, com a ausência ou a escassa actividade mitótica a ser considerada o mais importante preditor de benignidade destes tumores⁴. O LMB, embora, histologicamente semelhante ao leiomioma primário pulmonar, possui receptores de estrogénio e progesterona e apresenta-se frequentemente na forma de nódulos parenquimatosos múltiplos numa mulher com história prévia de doença uterina leiomiomatosa⁴. Dado não terem sido encontrados sinais de doença leiomiomatosa noutros órgãos e

os receptores hormonais terem sido negativos na histologia, o caso apresentado foi considerado não relacionado e, portanto, um leiomioma endobrônquico primário. O tratamento dos leiomiomas endobrônquicos, sintomáticos ou não, implica ressecção⁸. A escolha da modalidade terapêutica depende do tamanho, localização, base de implantação dos tumores e da existência ou não de destruição secundária do pulmão¹. Dada a natureza benigna destas lesões e o bom prognóstico a longo prazo após ressecção limitada, o tratamento deve basear-se, sempre que possível, numa abordagem conservadora^{3,5,8,9}. Embora a ressecção parenquimatosa tenha sido tradicionalmente usada, esta deve ser reservada para casos de destruição avançada e irreversível do pulmão secundários a infecções crónicas^{3,5,8,9}. Existem ainda relatos de casos referentes ao uso de procedimentos cirúrgicos alternativos, como a broncoplastia e a broncotomia³. No entanto, quando a ressecção completa é exequível, a evidência actual favorece a intervenção broncoscópica incluindo o uso do electrocautério, argon plasma, laser e da crioterapia, com bons resultados^{5,8,9}. As principais indicações para o uso destas técnicas envolvem uma localização estritamente endoluminal e central dos tumores e uma base pediculada^{1,9,10}. Excepto para o caso da crioterapia, todas as restantes técnicas permitem uma rápida ablação do tumor¹⁰. O Nd:YAG laser e o desbridamento mecânico através da BR estão descritos, na literatura, como seguros e eficazes no tratamento com intenção curativa destas lesões benignas, com uma baixa taxa de complicações, quando utilizados por um técnico experiente^{1,9,10}. Os autores apresentam o caso de um leiomioma primário do BPD, junto à carina principal, com uma base de inserção limitada, o que permitiu o sucesso da ressecção utilizando o Nd:YAG laser e um excelente prognóstico, obviando o recurso a um procedimento cirúrgico de maior risco.

Conclusão

Os leiomiomas endobrônquicos primários são tumores raros que devem ser considerados quando sintomas de doença obstrutiva brônquica surgem e persistem. Nas mulheres,

uma origem leiomiomatosa secundária deve ser excluída. No caso de leiomiomas com localização central e uma base de inserção limitada a ressecção laser com intuito terapêutico pode condicionar um excelente prognóstico.

Bibliografia

1. Shah H, Garbe L, Nussbaum E, Dumon JF, Chiodera PL, Cavaliere S. Benign tumors of the tracheobronchial tree. Endoscopic characteristics and role of laser resection. *Chest*. 1995;107:1744–51.
2. Arrigoni MG, Woolner LB, Bernatz PE, Miller We, Fontana RS. Benign tumors of the lung: a ten year surgical experience. *J Thorax Cardiovasc Surg*. 1970;60:589–99.
3. White SH, Ibrahim NBM, Forrester-Wood CP, Jeyasingham K. Leiomyomas of the lower respiratory tract. *Thorax*. 1985;40:306–11.
4. Awonuga AO, Shavell VI, Imudia AN, Rotas M, Diamond MP, Puscheck EE. Pathogenesis of benign metastasizing leiomyoma. *Obstet Gynecol Surv*. 2010;65:189–95.
5. Dmello D, Javed A, Espiritu J, Matuschak G. Endobronchial Leiomyoma: Case Report and Literature Review. *J Bronchol Intervent Pulmonol*. 2009;16:49–51.
6. Unger L. The recognition of nonallergic asthma. *Dis Chest*. 1952;22:671–84.
7. Shahian DM, Mc Enany MT. Complete endobronchial excision of leiomyoma of the bronchus. *J Thorax Cardiovasc Surg*. 1979;77:87–91.
8. Fell CD, Tremblay A, Michaud GC, Michaud GA, Urbansky S. Electrocauterization of an endobronchial leiomyoma. *J Bronchol*. 2005;12:181–3.
9. Kwon YS, Koh WJ, Suc GY, Chung MP, Kwon OJ, Han J. Clinical characteristics and efficacy of bronchoscopic intervention for tracheobronchial leiomyoma. *Respirology*. 2008;13:908–12.
10. Bolliger CT, Sutedja TG, Strausz J, Freitag L. Therapeutic bronchoscopy with immediate effect: laser, electrocautery, argon plasma coagulation and stents. *Eur Respir J*. 2006;27:1258-71.