

## Chistul hidatic al mediastinului anterior

C. Motaș, N. Motaș, M. Davidescu, O. Rus, T. Horvat

Clinica de Chirurgie Toracică, Institutul Oncologic "Prof. Dr. Al. Trestioreanu", București, România

### Rezumat

*Introducere:* Boala hidatică este endemică în România. Deși leziunile se pot întâlni practic în orice organ sau segment anatomic, cele mai frecvente sunt hepatice și pulmonare. Chistele hidatice mediastinale sunt extrem de rare, fiind relativ puține descrieri în literatura de specialitate.

*Material și metodă:* Între 1994 și 2011 au fost diagnosticați și tratați chirurgical în Clinica de Chirurgie Toracică II UMF "Carol Davila" 3 pacienți cu chiste hidatice mediastinale, 2 bărbați și 1 femeie, având vârstele de 20, 37 și, respectiv, 52 de ani. Chistele au fost localizate în mediastinul anterior și au fost solitare la momentul diagnosticului.

*Rezultate:* Într-un caz diagnosticul a fost precizat preoperator, celelalte fiind descoperiri intraoperatorii. Abordul chirurgical a fost prin toracotomie; un chist era neviabil (chist hidatic timic) și s-a practicat chistectomie ideală, iar 2 chiste erau necomplicate. S-a înregistrat o singură complicație postoperatorie, embolie gazoasă cerebrală, remisă prin tratament medical; cauza a fost folosirea intraoperatorie a H<sub>2</sub>O<sub>2</sub> ca agent scolicid.

*Concluzii:* Deși extrem de rar întâlnite în practică, chistele hidatice mediastinale trebuie luate în considerare în evaluarea unui pacient cu formațiune la nivelul mediastinului anterior. Tratamentul de elecție este cel chirurgical; acesta, împreună cu tratamentul parazitoidic postoperator, sunt singurele care asigură vindecarea completă a acestor pacienți.

**Cuvinte cheie:** chist hidatic, tumoră mediastin, mediastin anterior

### Abstract

#### *Hydatid cyst of anterior mediastinum*

*Introduction:* Echinococcosis is endemic in Romania. Hydatid cyst can develop in any segment or organ, but the most frequent locations are liver and lung. Mediastinal hydatid lesions are extremely rare and only a few cases exists in the medical literature.

*Material and method:* Between 1994 and 2011 Thoracic Surgery Clinic, UMF "Carol Davila" there were 3 patients diagnosed and surgical treated for hydatid cyst of mediastinum. The patients were 2 men and 1 woman aged of 20, 37 and 52 years. All hydatid cysts were located in the anterior mediastinum and all were solitary lesions when diagnosed.

*Results:* In 1 case the positive diagnosis was made preoperatory, in the other 2 the diagnosis was intraoperatory. The approach was through thoracotomy. One cyst was complicated (non-viable tymphic hydatid cyst), treated by ideal cystectomy, and 2 chysts were viable. There was 1 postoperatory complication: gaseous cerebral embolism remitted after medical treatment, caused by the intraoperatory use of H<sub>2</sub>O<sub>2</sub> as scolicide agent.

*Conclusions:* Although very rare, anterior mediastinal hydatid cysts must be considered in every patient with anterior mediastinal mass. Complete surgical excision is the treatment of choice; surgery followed by parasiticide therapy provides complete cure.

**Key words:** hydatid cyst, mediastinal tumour, anterior mediastinum

*Correspondență:* Dr. Cezar Motaș  
Clinica de Chirurgie Toracică IOB  
Șoseaua Fundeni Nr. 252, Sector 2, RO-022338  
București, România  
E-mail: cezarmotas@gmail.com

## Introducere

Boala hidatică este destul de frecventă în patologia curentă, România fiind considerată încă o zonă endemică, alături de Turcia, Maroc, Algeria și India. Termenul de chist hidatic a fost creat în 1800 de Karl Rudolphi (1), considerat părintele helmintologiei. Astfel, termenul derivă din grecescul "hidatida" care înseamnă "picătură de apă".

Cel mai des aceste leziuni sunt localizate la nivelul ficatului, pe locul doi ca frecvență fiind localizările pulmonare. Practic în orice segment al corpului uman se pot dezvolta astfel de leziuni (2,3), singurele exceptate fiind unghiile, părul, dinții (4), cristalinelul, cartilajul. Localizarea primară mediastinală este excepțională, în literatura de specialitate fiind citate circa 100 de astfel de topografii (5).

## Prezentarea cazurilor

*Primul caz este cel al unui bărbat, în vârstă de 20 de ani (militar în stagiu), care se internează cu suspiciunea de tumoră mediastinală. Un examen radiologic toracic efectuat anterior internării relevă o opacitate paramediastinală stângă, superior de croșa aortică. Singurele manifestări clinice semnalate au fost nespecifice: dureri toracice ușoare, tuse neproductivă. Examenul CT toracic confirmă existența unei leziuni tumorale chistice, cu densități lichidiene, localizată în partea superioară a mediastinului anterior.*

*Se intervine chirurgical prin toracotomie axilară stângă, spațiul III intercostal, descoperindu-se la nivelul mediastinului anterior o leziune chistică, cu dimensiuni de 4/3 cm, aflată în contact intim cu marile vase și prezentând aderențe cu lobul superior pulmonar stâng. Pe parcursul disecției se produce efracția formațiunii și a cuticulei cu exteriorizarea de lichid hidatic în spațiul pleural. După îndepărtarea cuticulei, badijonarea cavității chistice cu comprese îmbibate în alcool și lavajul pleural cu soluție scolicidă (apă oxigenată) se practică perichistectomie parțială, rămânând pe loc fragmentul aderent de trunchiul arterial brahiocefalic. Evoluția postoperatorie este favorabilă.*

*Al doilea caz este cel al unui bărbat în vârstă de 52 ani, complet asimptomatic, care se internează în urma descoperirii la un examen radiologic de rutină a lărgirii umbrei mediastinale pe partea dreaptă. Efectuează un examen CT toracic care pune în evidență la nivelul timusului, o formațiune tumorală ovoidală, care conține și o structură sugestivă pentru o membrană hidatică decolată (Fig. 1). Din antecedentele pacientului notăm un chist hidatic hepatic operat în urmă cu 5 ani pentru care a urmat tratamentul paraziticid.*

*La momentul operator (acces printr-o toracotomie anterolaterală prin spațiul III drept), se constată un timus transformat tumoral care este rezecat în întregime. După secționarea piesei de rezecție se constată prezența unei leziuni hidatice complicate, parazitul nefiind viabil. Evoluția a fost simplă, cu vindecare chirurgicală completă.*

*Cel de-al treilea caz este cel al unei femei, în vârstă de 37 ani, care, în urma unei simptomatologii nespecifice toracice*



**Figura 1.** CT torace nativ – chist hidatic timic; se observă cuticula decolată

*(tuse iritativă, dureri toracice difuze) efectuează un examen radiologic care evidențiază un mediastin ușor lărgit spre partea dreaptă, superior de hilul pulmonar. Computerul tomograf toracic evidențiază o tumoră chistică lichidiană, localizată în mediastinul anterior, fiind în contact cu vena cavă superioară.*

*Se practică intervenția chirurgicală de rezecție, accesul fiind efectuat printr-o toracotomie axilară dreaptă în spațiul III intercostal drept. Intraoperator se evidențiază o leziune tumorală chistică, aflată în mediastinul anterior, placată pe vena cavă superioară și aderentă de lobul superior drept. În timpul disecției formațiunii se produce o mică ruptură a peretelui formațiunii, cu scurgerea în spațiul pleural a unei mici cantități de lichid limpede și evidențierea membranei hidatice. După aspirarea lichidului și evacuarea cuticulei se practică perichistectomie parțială, rămânând pe loc porțiunea aderentă de vena cavă. Datorită contaminării pleurale se efectuează lavajul pleural cu o soluție scolicidă: apă oxigenată.*

*Postoperator evoluția a fost marcată de apariția unei simptomatologii neurologice de tip central: obnubilare, afazie de expresie, deficit motor drept și o laterodeviere a capului și a ochilor spre stânga – semne ale unui accident vascular cerebral ischemic în teritoriul silvian stâng. Examenul CT cerebral efectuat în urgență și datele clinice susțin diagnosticul de embolie cerebrală gazoasă, factorul declanșant fiind oxigenul degajat în timpul lavajului pleural cu apă oxigenată. Simptomele s-au remis complet după 5 zile, sub tratament conservator cu vasodilatatoare cerebrale, oxigenoterapie, anti-coagulant, postură Trendelenburg.*

*Menționăm că niciunul din pacienți nu a prezentat eozinofilie și nu au fost efectuate teste serologice de determinare a Teniei Echinococcus. În toate cazurile evaluarea paraclinică preoperatorie a inclus și ecografia abdominală. De remarcat este faptul că toate cele trei chiste au fost leziuni solitare în momentul diagnosticului, nefiind relevate și alte localizări simultane ale bolii hidatice. În niciuna din situații nu*

*s-a constatat prezența veziculelor fiice*

*Toți pacienții în postoperator au fost dispensați în rețeaua de parazitologie pentru a urma tratamentul paraziticid.*

## Discuții

Localizarea mediastinală a chistelor hidatice este extrem de rară și, atunci când apar, cele mai multe sunt la nivelul mediastinului posterior (5,6). Eroglu (7), din 427 de leziuni hidatice intratoracice, pe 11 (2,5%) le-a identificat ca fiind primar mediastinale: 4 în mediastinul anterior, 2 în cel visceral și 5 în cel posterior. Thameur (8) găsește într-un studiu pe 1619 cazuri de hidatidoză toracică, 8 determinări în mediastin (0,5%). Din 206 chiste hidatice toracice urmărite, Traibi găsește 7 localizări mediastinale: 2 anterioare, 2 viscerale și 3 posterioare (9). Un alt studiu reprezentativ efectuat de Rakower și Milwidsky (10) găsește din 23 000 de cazuri de hidatidoză toracică doar 25 de leziuni mediastinale (0,1%). Din cele 13593 de intervenții chirurgicale efectuate în Clinica de Chirurgie Toracică a UMF "Carol Davila" București în perioada septembrie 1994 - septembrie 2009, 476 au fost efectuate pentru chiste hidatice intratoracice (3,5%), doar în 3 cazuri diagnosticul a fost de chist hidatic mediastinal, ceea ce înseamnă 0,02% din întreaga patologie toracică și 0,63% din leziunile hidatice toracice. Această localizare rară a chistului hidatic este explicată prin faptul că mediastinul, conținând preponderent vase de calibru mare și structuri limfatice, nu constituie locul de microembolizare a paraziților, astfel această topografie este destul de rară (11).

Manifestările clinice și complicațiile depind de dimensiunea și localizarea chistului, precum și de gradul de afectare a structurilor învecinate. Astfel, simptomele pot cuprinde dureri retrosternale, dureri toracice difuze, tuse, disfagie, disfonie sau sindrom de venă cavă superioară. În multe cazuri leziunile hidatice mediastinale sunt asimptomatice. Au fost citate cazuri cu apariția sindromului de venă cavă superioară (12), a sindromului Claude-Bernard-Horner (13,14) sau chiar cu sindrom Pancoast (15).

Extensia la nivelul structurilor învecinate poate determina apariția unor complicații redutabile, în mediastin aflându-se numeroase structuri cu rol vital. Aceste tipuri de manifestări pot reprezenta modalitatea de debut a bolii hidatice. Astfel, în 1988, Bonmati (16) prezintă un caz de chist hidatic mediastinal voluminos cu o fistulă cu aorta prin care a migrat material hidatic și s-a produs embolie la nivelul ambelor artere poplitee – ceea ce a condus la simptomatologia de debut. O altă posibilitate evolutivă a fost publicată în 2001 de Dănilă și colaboratorii (11). Autorii prezintă un chist hidatic cervico-mediastinal la care debutul clinic a fost cu hemipareză stângă datorită compresiei medulare exercitate de leziunea extinsă până în canalul rahidian cervical. Compresia arterei pulmonare drepte de către un chist hidatic mediastinal și coexistența lui cu un chist pericardic a determinat ca primă manifestare colapsul circulator (17). Chistul se poate infecta sau rupe în mediastin, în spațiul pleural sau chiar în ventriculul drept (18,19,20).

Radiografia toracică și examenul CT toracic sunt cele mai utilizate modalități de evaluare a acestor pacienți. CT toracic

este considerat esențial datorită posibilității de a evidenția morfologia acestor leziuni, topografia exactă și densitatea lor, dar și datorită posibilității de a evidenția alte leziuni asociate (ex. leziuni hepatice sau pulmonare). Ecografia abdominală considerăm că trebuie efectuată obligatoriu la acești pacienți.

Diagnosticul diferențial este extrem de dificil, trebuind luate în calcul practic toate leziunile chistice mediastinale: chistul timic, chistul pleuro-pericardic, meningocelul, chistul dermoid, chistul bronhogenetic, cel limfatic sau cel gastro-enteric (21). Trebuie avut în vedere faptul că echinococoză mediastinală de cele mai multe ori nu poate fi diferențiată nici clinic și nici radiologic de alte leziuni chistice mediastinale (22), de aceea de multe ori diagnosticul este intraoperator.

În literatura de specialitate sunt propuse o serie de tratamente conservatoare cum ar fi administrarea de mebendazol (23) sau PAIR (puncție, aspirație, injectare, reaspirație). Acest din urmă procedeu a fost propus inițial pentru hidatidoza hepatică (24,25,26) și constă în puncția și aspirația chistului urmată de injectarea unor agenți cu efect scoloid și reaspirația lichidului. Considerăm că aceste tratamente sunt incomplete deoarece nu rezolvă decât aspectul viabilității parazitului. O astfel de abordare nu rezolvă problema cavității restante și nici pe cea a corpului străin reprezentat de cuticulă. Din acest motiv considerăm că tratamentul chirurgical este de elecție. Acesta presupune inactivarea și evacuarea lichidului hidatic, evacuarea cuticulei și a eventualelor vezicule fiice, rezecția perichistului (pe cât mai mult posibil) pentru a desființa cavitatea reziduală (27,28).

Accesul se practică prin toracotomie înaltă dreaptă sau stângă în funcție de lateralizarea formațiunii chistice. Deși au fost citate cazuri de leziuni hidatice toracice abordate minim-invaziv, tehnica toracoscopică a fost mai rar utilizată datorită riscului de rupere a chistului cu contaminarea consecutivă a spațiului pleural (29). De asemeni și eventualele incidente determinate de invazia chistică a structurilor mediastinale, sunt mai greu de rezolvate în condițiile spațiului de lucru redus din chirurgia videoasistată. Datorită prezenței în mediastin a numeroase structuri dificil sau greu de rezecat (aortă, vene cave, esofag, trahee) de multe ori perichistul aderent de acestea este prezervat. În studiul efectuat de Eroglu și colaboratorii (7), în 4 din cele 11 cazuri de chiste hidatice mediastinale s-a practicat perichistectomia parțială. Pe de altă parte, de multe ori aceste leziuni sunt descoperite intraoperatorii, disecția chistului fiind făcută fără a se fi inactivat parazitul. Pot apare astfel efracții ale cuticulei cu revărsarea de lichid hidatic în spațiul pleural, fiind necesar un lavaj pleural cu un agent scoloidal cum ar fi apa oxigenată (18). Peroxidul de hidrogen, prin marea cantitate de oxigen degajată, poate fi implicat în apariția unor manifestări embolice gazoase. Într-unul din cele trei cazuri operate de noi, postoperator s-a constatat apariția unei embolii gazoase cerebrale cu manifestări clinice remise complet sub tratament conservator.

## Concluzii

Deși extrem de rară, localizarea mediastinală anterioară a chistului hidatic trebuie luată în considerare în cazul unor

tumori chistice cu această topografie, mai ales dacă pacientul provine dintr-o zonă endemică. Diagnosticul pozitiv și cel diferențial sunt dificile. Deseori mijloacele moderne de diagnostic sunt limitate la a evidenția doar o leziune chistică mediastinală, fără a putea preciza însă originea parazitara. Tratamentul chirurgical este de elecție, fiind singurul capabil să inactiveze parazitul, să îndepărteze cuticula și să desființeze cavitatea reziduală, asigurând vindecarea completă.

## Bibliografie

- Romero-Torres R, Campbell JR. An interpretive review of the surgical treatment of hydatid disease. *Surg Gynecol Obstet.* 1965;121(4):851-64.
- Unc OD, Steriu L, Iordache I, Kabtour B, Ples D, Calin I, et al. Rare forms of hydatid cyst. Case reports. *Chirurgia (Bucur).* 2010;105(1):103-7. [Article in Romanian]
- Atmatzidis K, Koutelidakis I, Papaziogas B, Alexandrakis A, Chatzimavroudis G, Grigoriou M, et al. Primary hydatid cyst of the thigh. *Chirurgia (Bucur).* 2006;101(4):419-21
- Ismail MA, Al-Dabagh MA, Al-Janabi TA, Al-Moslih MI, Al-Ani MS, Rassam S, et al. The use of computerised axial tomography (CAT) in the diagnosis of hydatid cysts. *Clin Radiol.* 1980;31(3):287-90.
- Rocco G, Shields TW. Mesothelial and Other Less Common Cysts of the Mediastinum. In: LoCicero J. TW, Reed CE, Feins RH, editors. *General Thoracic Surgery.* 7th ed., Philadelphia: Ed. Wippincot, Williams and Wilkins; 2009. p. 2539-2552.
- Mitra S, Kundu S, Das S, Mukherjee S. Mediastinal hydatid disease: an unusual presentation. *Indian J Chest Dis Allied Sci.* 2010;52(4):245-7.
- Eroğlu A, Kürkçüoğlu C, Karaoğlanoğlu N, Tekinbaş C, Kaynar H, Onbaş O. Primary hydatid cysts of the mediastinum. *Eur J Cardiothorac Surg.* 2002;22(4):599-601.
- Thameur H, Chenik S, Abdelmoulah S, Bey M, Hachicha S, Chemingui M, et al. Thoracic hydatidosis. A review of 1619 cases. *Rev Pneumol Clin.* 2000;56(1):7-15. [Article in French]
- Traibi A, Atoini F, Zidane A, Arsalane A, Kabiri el H. Mediastinal hydatid cyst. *J Chin Med Assoc.* 2010;73(1):3-7.
- Rakower J, Milwidsky H. Primary mediastinal echinococcosis. *Am J Med.* 1960;29:73-83.
- Dănilă N, Chifan M, Prescorniță L, Andronic D, Tarași C, Crumpei F. Rare location of a hydatid cyst - in the upper mediastinum migrating into the spinal channel. *Rev Med Chir Soc Med Nat Iasi.* 2001;105(3):573-5.
- Vinas E. Quiste hidatidico del mediastino. *Rev Méd Uruguay.* 1901;2:163.
- Sirmali M, Gezer S, Aydin E, Kaya S. Giant primary mediastinal hydatid cyst causing Horner's syndrome: report of a case. *Acta Chir Belg.* 2005;105(2):221-3.
- Purohit M, Srivastava CP, Yadav KS. Primary mediastinal hydatid cyst. *Indian J Chest Dis Allied Sci.* 1999;41(1):57-60.
- Ozpolat B, Ozeren M, Soyal T, Yucel E. Unusually located intrathoracic extrapulmonary mediastinal hydatid cyst manifesting as Pancoast syndrome. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2005;129(3):688-9.
- Marti-Bonmati L, Touza R, Montes H. CT diagnosis of primary mediastinal hydatid cyst rupture into the aorta: a case report. *Cardiovasc Intervent Radiol.* 1988;11(5):296-9.
- Gossios K, Passas G, Kontogiannis D, Kakadellis J. Mediastinal and pericardial hydatid cysts: an unusual cause of circulatory collapse. *AJR Am J Roentgenol.* 2003;181(1):285-6.
- Kabiri el H, Zidane A, Atoini F, Arsalane A, Bellamari H. Primary hydatid cyst of the posterior mediastinum. *Asian Cardiovasc Thorac Ann.* 2007;15(5):e60-2.
- Franquet T, Plaza V, Llauger J, Giménez A, Bordes R. Hydatid pulmonary embolism from a ruptured mediastinal cyst: high-resolution computed tomography, angiographic, and pathologic findings. *J Thorac Imaging.* 1999;14(2):138-41.
- Mitra S, Kundu S, Das S, Mukherjee S. Mediastinal hydatid disease: an unusual presentation. *Indian J Chest Dis Allied Sci.* 2010;52(4):245-7.
- Horvat T, Nicodin A, Motaș C. Tumorile mediastinului. In: Popescu I, editor. *Tratat de Chirurgie, vol. IV - Chirurgie Toracică.* București: Ed. Academiei Române; 2008. p. 717-756.
- Rashid M, Zafar Abbas S, Ahmad I, bin Asaf B, Faizan MA. Multivesicular mediastinal hydatid cyst presenting with left recurrent and phrenic nerve palsy. *JBR-BTR.* 2008;91(4):155-7.
- Oppermann HC, Appell RG, Bostel F, Van Kaick G, Wahn U. Mediastinal hydatid disease in childhood: CT documentation of response to treatment with mebendazole. *J Comput Assist Tomogr.* 1982;6(1):175-6.
- Smego RA Jr, Bhatti S, Khaliq AA, Beg MA. Percutaneous aspiration-injection-reaspiration drainage plus albendazole or mebendazole for hepatic cystic echinococcosis: a meta-analysis. *Clin Infect Dis.* 2003;37(8):1073-83. Epub 2003 Sep 23.
- Ustünsöz B, Akhan O, Kamiloğlu MA, Somuncu I, Uğurel MS, Cetiner S. Percutaneous treatment of hydatid cysts of the liver: long-term results. *AJR Am J Roentgenol.* 1999;172(1):91-6.
- Duță C, Păscuț M, Bordoș D. Percutaneous treatment of the liver hydatid cysts under sonographic guidance. *Chirurgia (Bucur).* 2002;97(2):173-7. [Article in Romanian]
- Horvat T. Noțiuni Elementare de Chirurgie Toracică - Curs pentru studenți. București: Editura Inedit; 2000.
- Horvat T, Nicodin A, Cordoș I. Chistul hidatic pulmonar. In: Popescu I, editor. *Tratat de Chirurgie, vol. IV - Chirurgie Toracică.* București: Ed. Academiei Române; 2008. p. 429-441.
- Grigoriou M, Stănescu C, Merlusca G, Popescu I. Minimally invasive combined surgical treatment in a case of bilateral pulmonary hydatidosis. *Chirurgia (Bucur).* 2006;101(2):195-9. [Article in Romanian]