

Artigo de Revisão

Revision Article

Diva Ferreira¹
José Almeida²
Bárbara Parente³
João Moura e Sá⁴

Ressecção completa de hamartomas endobrônquicos por técnicas broncoscópicas, electrocirurgia por *argon* plasma e *laser* Nd-YAG

Complete resection of endobronchial hamartomas via bronchoscopic techniques, electrosurgery by Argon plasma and laser

Recebido para publicação/received for publication: 06.09.07
Aceite para publicação/accepted for publication: 07.03.26

Resumo

Os hamartomas são lesões benignas, geralmente pulmonares, e frequentemente assintomáticos. Tipicamente, são achados acidentais através de estudos radiológicos do tórax. Cerca de 1,4 a 20% dos hamartomas têm localização endobrônquica e podem tornar-se sintomáticos por obstrução da via aérea. A ressecção cirúrgica tem sido o tratamento *standard* do hamartoma endobrônquico no entanto, tem-se observado uma experiência crescente no tratamento endoscópico sem registo de complicações. Nos casos seleccionados, a ressecção endoscópica tem eficácia terapêutica comparável à ressecção cirúrgica, poupando uma cirurgia. Os autores apresentam dois casos de hamartomas

Abstract

Hamartomas are benign neoplasms often located in lung and frequently asymptomatic. They are typically discovered incidentally with thorax radiographic studies. About 1.4-20% of hamartomas have endobronchial location and can be symptomatic due to airway obstruction.

Traditionally, surgical resection has been considered the standard of care for endobronchial hamartoma. However, there is increasing experience using endoscopic treatment and a paucity of reported complications. Endoscopic resection has comparable therapeutic efficacy with surgical resection but spares a *major* operation.

¹ Interna complementar de Pneumologia

² Assistente Hospitalar de Pneumologia

³ Assistente Graduada de Pneumologia. Responsável da Unidade de Pneumologia Oncológica

⁴ Assistente Graduado de Pneumologia. Responsável da Unidade de Broncologia

Centro Hospitalar de Vila Nova de Gaia

Correspondência / Correspondence to:

Diva de Fátima Gonçalves Ferreira
Rua Conceição Fernandes
4434-502 Vila Nova de Gaia
Email: divafferreira@sapo.pt

endobronquiais, ambos diagnosticados e tratados definitivamente por técnicas broncoscópicas. Sintomas persistentes e alterações radiológicas torácicas determinaram o estudo por esta técnica. Foi efectuado tratamento endobronquial através de electrocirurgia por *Argon* plasma (APC) e *laser* Nd:YAG, o que permitiu a resolução completa dos sintomas em ambos os doentes. A reavaliação endoscópica regular excluiu doença residual ou recidivante.

Rev Port Pneumol 2007; XIII (5): 711-719

Palavras-chave: Hamartomas endobronquiais, broncoscopia, electrocirurgia com *Argon* plasma, *laser* Nd:YAG.

We report two cases of endobronchial hamartomas, each diagnosed and definitively treated with bronchoscopic techniques. Persistent symptoms and abnormal radiological features were the impetus for initial diagnostic bronchoscopy. Endobronchial treatment was performed using electro-surgery by *Argon* plasma (APC) and Nd:YAG laser. This approach resulted in complete resolution of both patients' symptoms. Follow-up bronchoscopic examinations excluded residual or recurrent disease.

Rev Port Pneumol 2007; XIII (5): 711-719

Key-words: Endobronchial hamartomas, bronchoscopy, electro-surgery with *Argon* plasma, Nd:YAG laser

Introdução

Os hamartomas pulmonares são neofomações compostas por cartilagem, tecido adiposo, músculo liso e epitélio respiratório de forma desorganizada, representando até 5% dos nódulos solitários pulmonares. Sendo o mais frequente tumor benigno do pulmão (77%), é no entanto uma lesão rara, com uma incidência na população geral de 0,25%. Sem preferência de sexos e com maior incidência aos 70 anos, em 90% são periféricos e assintomáticos no momento do diagnóstico, e, os restantes, endobronquiais².

Os hamartomas endobronquiais são tumores benignos raros da árvore traqueobronquial que têm um potencial risco de obstrução brônquica ou hemorragia. Os doentes com sintomas respiratórios referem queixas de tosse, dispneia, sibilos ou episódios de pequenas hemoptises. Radiologicamente, não se detectam, ou podem levar a uma atelectasia ou pneumonia obstrutiva³.

A toracotomia com ressecção pulmonar ou brônquica tem sido o tratamento tradicional.

No entanto, o tratamento endoscópico com broncoscopia rígida, electrocirurgia com *Argon* plasma (APC) e *laser* Nd:YAG tem permitido um tratamento eficaz quando executado por broncologistas experientes. Assim, este tratamento é recomendado em doentes sintomáticos ou doentes com obstrução brônquica significativa⁴.

Os autores apresentam dois casos de hamartomas endobronquiais, ambos diagnosticados e tratados através de técnicas broncoscópicas. Foi efectuado tratamento endoscópico através de electrocirurgia por APC e *laser* Nd:YAG. Esta técnica permitiu a resolução completa dos sintomas de ambos os doentes, sem necessidade de recorrer a uma intervenção cirúrgica.

Caso clínico 1

MFB, sexo masculino, 48 anos, fumador, que recorre ao médico assistente por expectoração hemoptóica. Ao exame objectivo, sem al-

RESSECÇÃO COMPLETA DE HAMARTOMAS ENDOBRÔNQUICOS POR TÉCNICAS BRONCOSCÓPICAS, ELECTROCIRURGIA POR ARGON PLASMA E LASER ND-YAG

Diva Ferreira, José Almeida, Bárbara Parente, João Moura e Sá

terações. A telerradiografia torácica não revelou alterações evidentes, assim como a tomografia torácica (TC torácica). Realizou broncofibroscopia que mostrou no segmento posterior (B2) do lobo superior direito (LSD) obstrução por uma massa tumoral de superfície lisa, regular e pouco vascularizada com características de lesão benigna, com boa mobilidade. Realizada posteriormente broncoscopia rígida com introdução do broncofibroscópio (BF) através do broncoscópico rígido (BR), tendo-se então efectuado fotocoagulação da lesão tumoral por *laser*Nd:YAG,

com exérese parcial endobrônquica desta mesma massa (Fig. 1). Os subsegmentares ficaram ainda com crescimento tumoral, pelo que se procedeu à repetição da técnica duas semanas mais tarde. Foi feita electrocoagulação por *Argon* plasma, ficando os subsegmentares mais repermeabilizados. A anatomia patológica concluiu tratar-se de um hamartoma condróide. Reavaliação endoscópica três semanas depois que mostrou obstrução parcial da entrada do B2 direito por tecidos necróticos. Após limpeza, os subsegmentares ficaram então permeáveis, apenas com mucosa

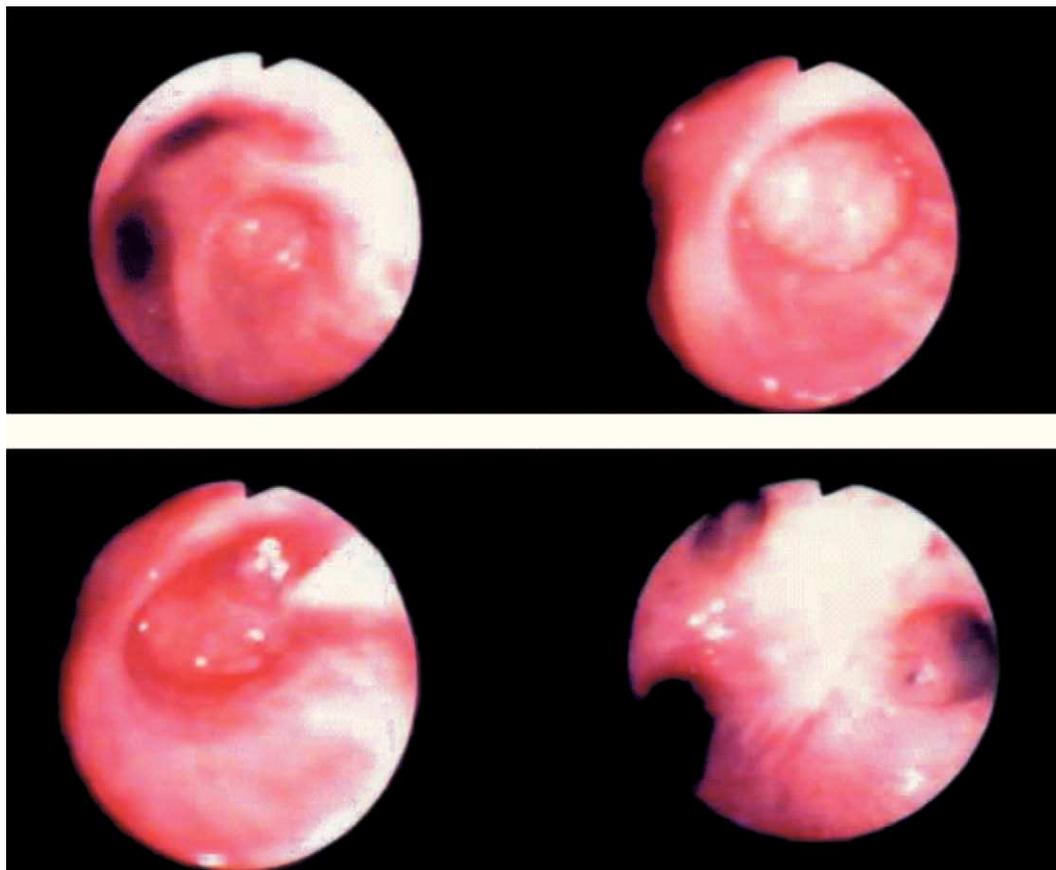


Fig. 1 – Obstrução do segmento posterior (B2) do LSD por uma massa tumoral de superfície lisa, regular e pouco vascularizada, com características de lesão benigna. Efectuada fotocoagulação da lesão tumoral por *laser* Nd:YAG, e depois *Argon* plasma, com exérese da lesão endobrônquica

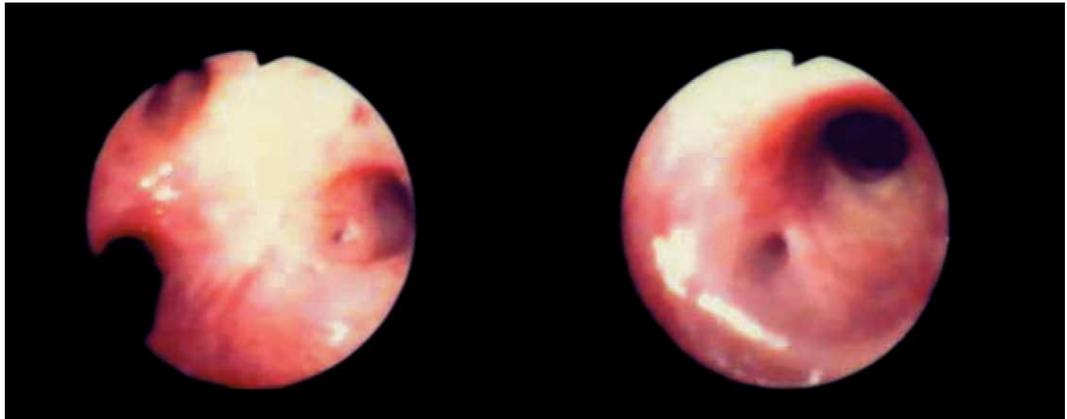


Fig. 2 – Repermeabilização do B2 direito, apresentando-se apenas o subsegmentar horizontal B2(b) ligeiramente estenosado

congestiva e edemaciada. Posteriormente, foram efectuadas mais cinco reavaliações, que excluíram recidiva de crescimento tumoral. O B2 direito manteve-se sempre patente, apresentando-se apenas o subsegmentar horizontal B2(b) ligeiramente estenosado, sem outras alterações (Fig. 2).

O doente permaneceu livre de sintomas respiratórios durante quatro anos, tendo falecido quatro anos depois por patologia digestiva, causa não relacionada com a lesão pulmonar.

Caso clínico 2

MRA, sexo feminino, 72 anos, não fumadora, que recorre ao médico assistente devido a queixas de dor no membro superior direito, associada a tosse seca persistente. Ao exame objectivo, sem alterações. A telerradiografia torácica revelou hipotransparência heterogénea paratraqueal e para-hilar direita. A TC torácica mostrou densificação parenquimatosa heterogénea com broncograma aéreo no LSD, atelectasia do segmento anterior em contacto com a pleura costal e pleura mediastínica anterior ipsilateral (Fig. 3). Realizada broncofi-

broscopia, esta mostrou uma massa tumoral de superfície lisa, regular e pouco vascularizada, com características de lesão benigna, obliterando a entrada do LSD e crescendo para o brônquio principal direito (BPD). Realizada posteriormente broncoscopia rígida, efectuou-se fotocoagulação da massa tumoral com *laser* Nd:YAG, o que permitiu a sua remoção e, assim, a permeabilização do LSD (Fig. 4).

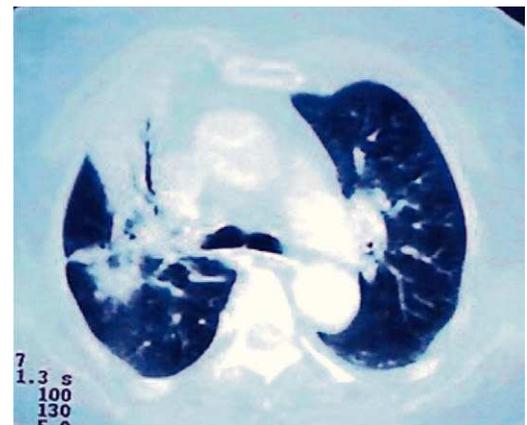


Fig. 3 – TC torácica: densificação parenquimatosa heterogénea com broncograma aéreo no LSD, atelectasia do segmento anterior em contacto com a pleura costal e pleura mediastínica anterior ipsilateral

RESSECÇÃO COMPLETA DE HAMARTOMAS ENDOBRÔNQUICOS POR TÉCNICAS BRONCOSCÓPICAS, ELECTROCIRURGIA POR ARGON PLASMA E LASER ND-YAG

Diva Ferreira, José Almeida, Bárbara Parente, João Moura e Sá

Base de implantação localizada na face interna no esporão de divisão entre o LSD e tronco o intermédio (II), prolongando-se para próximo da entrada dos segmentos anterior e posterior. A histologia da massa confirmou um hamartoma condróide. Procedeu-se à reavaliação três semanas mais tarde, tendo-se então realizado coagulação com *laser* Nd:YAG e também por *Argon* plasma (através de BF dentro do BR) na zona residual da base de implantação do hamartoma condróide, na

parte interna do esporão do LSD, que ficou livre de massa. Os segmentares e subsegmentares do LSD ficaram permeáveis (Fig. 5). Posteriormente, foram efectuadas mais três reavaliações, que excluíram recidiva de crescimento tumoral, mantendo-se o LSD com orifícios segmentares e subsegmentares permeáveis (Fig. 6). Telerradiografia e TC torácicas posteriores normais.

A doente permanece livre de sintomas, passados 12 meses após tratamento endoscópico.

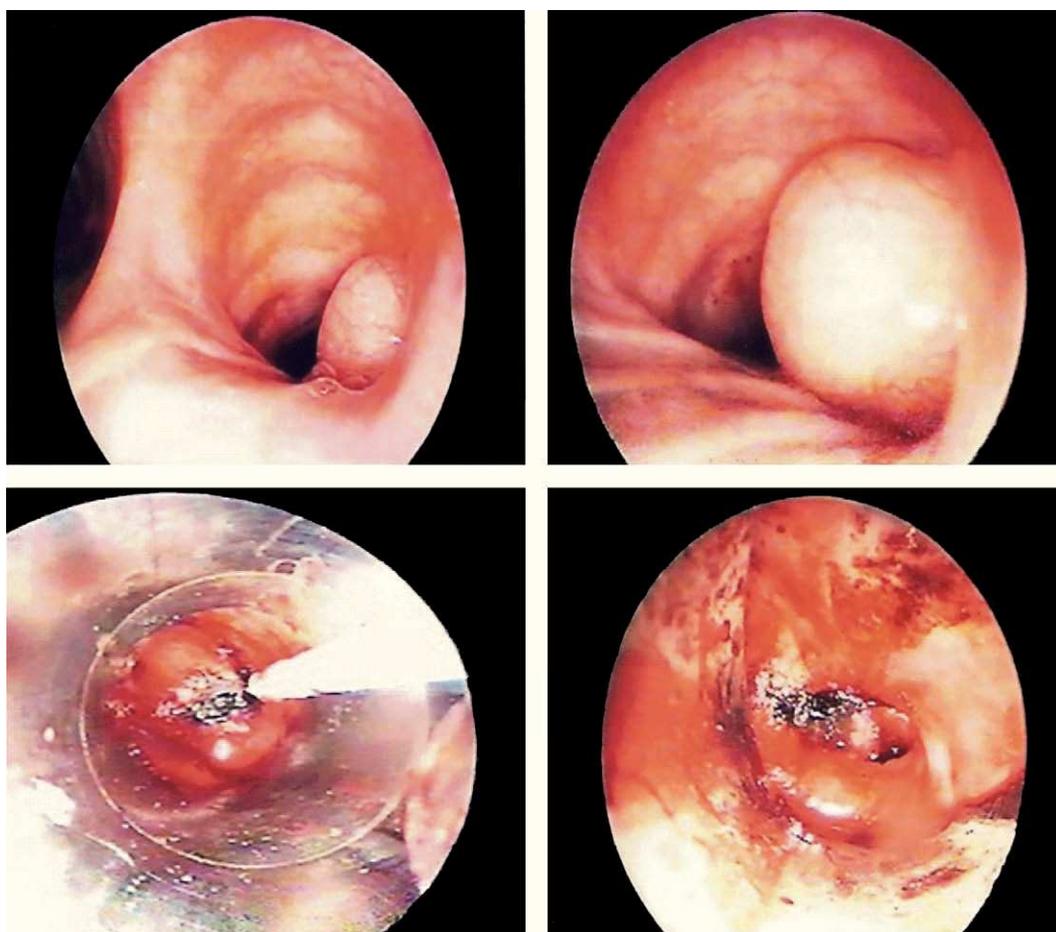


Fig. 4 – Massa tumoral de superfície lisa, regular e pouco vascularizada, com características de lesão benigna, obstruindo entrada do LSD e ocupando já o BPD. Realizada fotocoagulação da massa tumoral por *laser* Nd:YAG, o que permitiu a sua remoção e assim permeabilizar o LSD

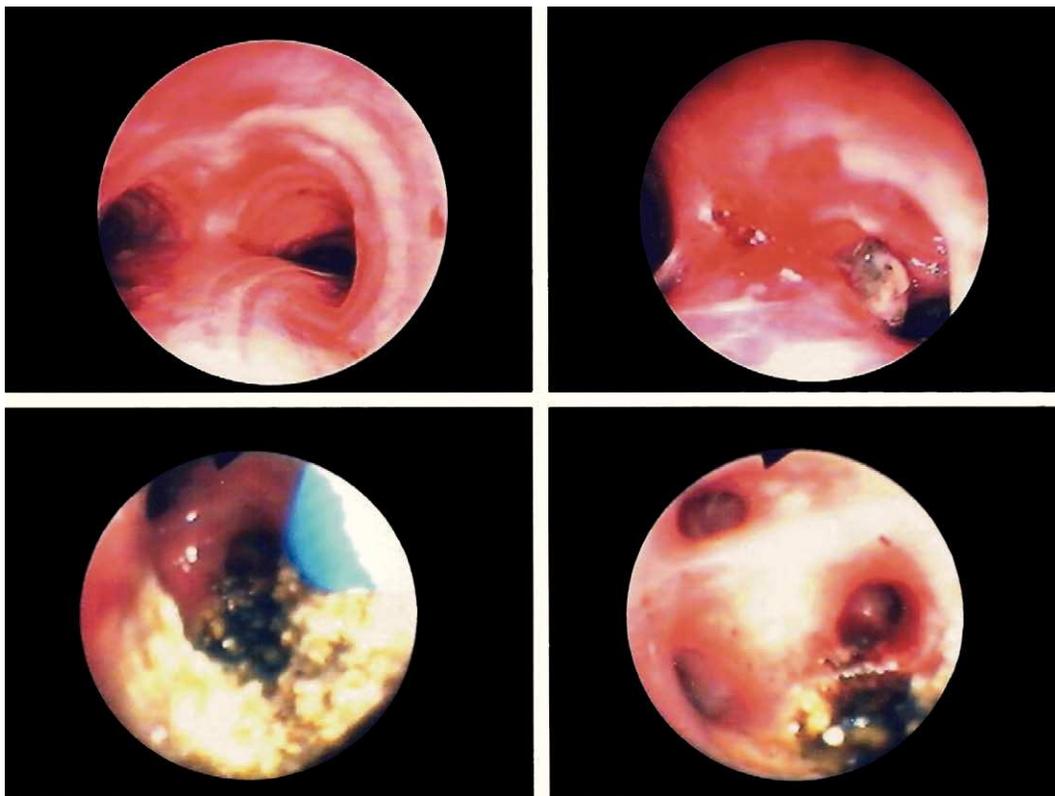


Fig. 5 – Reavaliação às 3 semanas, com realização de coagulação com *laser Nd:YAG* e também por *Argon* plasma na zona residual da base de implantação do hamartoma, ficando livre de massa. Os segmentares e subsegmentares do LSD ficaram permeáveis



Fig. 6 – Reavaliação com exclusão de recidiva de crescimento tumoral, mantendo-se o LSD com orifícios segmentares e subsegmentares permeáveis

Discussão

Os hamartomas são a neoplasia benigna mais frequente do pulmão, tipicamente encontrados no parênquima pulmonar sob a forma de nódulo solitário do pulmão. São frequentemente assintomáticos e descobertos como achados em estudos radiológicos torácicos. A sua incidência na população é de cerca de 0,25%, e são duas a quatro vezes mais frequentes nos homens³. A idade média de apresentação situa-se entre os 60 e os 70 anos.

Existem dois tipos de hamartomas: periféricos e centrais. Os periféricos, com localização intra-parenquimatosa, representam cerca de 85 a 90% dos hamartomas, e geralmente apresentam-se sob a forma de nódulo solitário do pulmão, com diâmetro entre 2 a 3 cm, podendo aumentar de dimensão. Frequentemente surgem também como massas subpleurais com limites bem circunscritos que podem apresentar calcificações ou, mais esporadicamente, gordura. Têm um crescimento muito lento (± 15 mm/ano), tempo de duplicação prolongado (até 14 anos) e padrão típico de calcificação em “pipoca” em 25% dos casos. Os hamartomas centrais, ou endobrônquicos, representam cerca de 10 a 15% do total e surgem sob a forma de lesão polipóide⁶. A incidência da forma endobrônquica foi de 7,8% nas séries de van den Bosch *et al.*⁸, de 7,7% nas séries de Ribet *et al.*⁹, e de 11,5% nas séries de Tomaszewski¹⁰.

A transformação maligna é rara, podendo, no entanto, assistir-se a um crescimento lento⁶.

Os hamartomas com localização endobrônquica podem ser sintomáticos devido a obstrução e irritação, como outros tumores endobrônquicos¹. São os tumores benignos da via aérea mais frequentes depois dos papilomas. A maioria dos hamartomas endobrônquicos são únicos e assintomáticos⁶.

Quando sintomáticos, os doentes referem geralmente queixas de dispneia, sibilos, tosse ou pequenas hemoptises. A obstrução do brônquio pelo hamartoma pode também levar a pneumonia recorrente no mesmo local. Os achados radiológicos incluem sinais de perda de volume, como atelectasia ou colapso lobar completo². Também pode ser encontrada consolidação do parênquima por pneumonia obstrutiva. Ocasionalmente, a TC torácica permite diagnosticar lesões endobrônquicas.

O diagnóstico definitivo é obtido por broncoscopia com biópsia do hamartoma. A observação endoscópica geralmente revela uma lesão endobrônquica polipóide bem circunscrita, mole, de superfície lisa, regular e esbranquiçada, com ausência de sinais de infiltração da submucosa³.

A histologia mostra ser composto por elementos mesenquimatosos em várias proporções, como tecido cartilágneo, conjuntivo e músculo liso, frequentemente associados a tecido adiposo e calcificações. Frequentemente estão também associados elementos epiteliais pseudoglandulares. Dado o componente predominante ser a cartilagem, a designação mais corrente é hamartoma condróide, ou hamartocondroma⁶.

Têm um baixo risco de malignidade e uma reduzida taxa de recorrência.

Pelo facto de frequentemente serem sintomáticos, o tratamento dos hamartomas endobrônquicos é recomendado³. O tratamento tradicional descrito consiste na toracotomia com broncotomia ou ressecção pulmonar. Na última década, têm sido descritos casos de hamartomas endobrônquicos tratados com sucesso através de técnicas broncoscópicas, poupando uma intervenção cirúrgica, com resolução completa de sintomas². Esta forma de tratamento constitui uma excelente opção

devido ao facto de estes tumores terem uma localização estritamente endoluminal e também ao seu padrão de crescimento, sem extensão para além da árvore traqueobrônquica⁵. Se o hamartoma endobrônquico se estender para além da via aérea, a ressecção broncoscópica apenas remove a porção visível do tumor. A parte remanescente da lesão, localizada fora do lúmen, pode crescer a ritmo lento e alcançar novamente a via aérea alguns anos mais tarde⁵.

Diferentes técnicas endoscópicas de ressecção são utilizadas. As mais frequentes incluem a excisão através do BR, e também a remoção por *laser* Nd:YAG. Noutras séries, é descrita a utilização de electrocirurgia de forma isolada ou associada a fotocoagulação por *laser* Nd:YAG². O *laser* Nd:YAG produz um feixe de luz monocromática que induz coagulação, hemostase e necrose tecidual⁷. Pode ser utilizado através de BR ou BF, sendo no entanto o BR a forma preferida. O uso do *laser* Nd:YAG na árvore traqueobrônquica requer algum cuidado, tendo em conta a localização anatómica e a configuração da lesão. Por exemplo, se esta estiver próxima do esófago ou artéria pulmonar, pode haver o risco de formação de fístula⁷. Os efeitos tecidulares da electrocirurgia são semelhantes aos produzidos pelo *laser* Nd:YAG, podendo ser utilizado também por BR ou BF. Tem a vantagem de poder ser realizado em lesões distais, com um risco de perfuração inferior ao do *laser* Nd:YAG⁷.

A utilização do BR tem várias vantagens em relação ao BF. Por exemplo, permite a aspiração de sangue com mais eficácia, mantendo assim uma melhor patência da via aérea. Possibilita também a ventilação do doente durante o exame, enquanto a broncofibroscopia não permite a ventilação adequada. Por

fim, a excisão da massa através do BR é mais fácil e também mais eficaz em alguns casos. No entanto, a broncofibroscopia pode ser útil na ressecção de lesões distais na árvore traqueobrônquica não acessíveis ao BR.

A realização de electrocirurgia endobrônquica acarreta alguns riscos, como a lesão da porção cartilágnea da via aérea. Além disso, a necrose por coagulação e a inflamação pode conduzir a fibrose e posterior estenose⁶. A extensão e severidade da lesão estão relacionadas com a duração do contacto com a sonda do electrocautério. Esta complicação pode ser resolvida através de dilatação por balão; no entanto, por vezes, a ressecção cirúrgica é necessária⁶.

A maior complicação destas técnicas é a remoção incompleta do hamartoma, com crescimento recidivante posterior. Por este motivo, é necessária a reavaliação clínica, radiológica e endoscópica do doente, com alguma regularidade. Os doentes que apresentem evidência de persistência e/ou recorrência tumoral devem ser orientados para ressecção cirúrgica². A recorrência dos hamartomas endobrônquicos é baixa.

Assim, a ressecção endoscópica é aconselhada como tratamento inicial destes casos, em alternativa à abordagem cirúrgica, dada a eficácia terapêutica similar.

As indicações para ressecção dos hamartomas endobrônquicos por *laser* são⁴:

1. Origem estritamente endoluminal do tumor
2. Extensão limitada à árvore traqueobrônquica
3. Baixa probabilidade de recorrência
4. Doentes com elevado risco cirúrgico
5. Doentes sintomáticos com compromisso da via aérea
6. Colapso lobar/pulmonar recente atribuível à obstrução pelo tumor

Nos casos clínicos apresentados, o tratamento endoscópico utilizando *laser* Nd:YAG e electrocirurgia com APC permitiu a remoção completa do hamartoma endobrônquico e prevenção de recidiva, com sucesso.

Em ambos os casos, o tratamento foi feito por etapas. Numa primeira fase, a fotocoagulação com *laser* Nd:YAG permitiu a remoção parcial do hamartoma, conferindo um maior grau de permeabilidade dos brônquios segmentares adjacentes, e também confirmar a base de implantação do mesmo. Posteriormente, a electrocirurgia com APC tornou possível a exérese completa de restos tumorais, de forma a não permitir uma recidiva tumoral, assim como resultou na reopermeabilização completa dos brônquios segmentares e subsegmentares. As reavaliações endoscópicas subsequentes confirmaram a manutenção da patência da árvore brônquica, sem sinais de recidiva tumoral.

Os doentes permaneceram livres de sintomas.

Bibliografia

1. Bulum S, Karagoz T. Case report: a rare cause of hemoptysis – endobronchial hamartoma. *Eur Resp J* 2005; 26(Suppl 49):305s.
2. Krukliński R, Sterman D. Complete resection of endobronchial hamartomas via flexible bronchoscopic techniques: electrosurgery and Nd:YAG laser. *J Bronchol* 2003; 10:279-82.
3. Cosío B, Sotelo T. Endobronchial Hamartoma. *Chest* 2002; 122:202-5.
4. Shah H, Cavaliere S. Benign tumors of the tracheobronchial tree – endoscopic characteristics and role of laser resection. *Chest* 1995; 107:1744-51.
5. Prakash, U. Bronchoscopic cure of surgically resectable tracheobronchial neoplasms. *J Bronchol* 2002; 9:85-6.
6. Alfageme I, Lara I. Endobronchial hamartoma diagnosed by flexible bronchoscopy. *J Bronchol* 2002; 9:212-5.
7. Seijo L, Sterman D. Interventional Pulmonology. *N Engl J Med* 2001; 344(10):740-7.
8. Van den Bosch JM, *et al.* Hamartoma of the lung: a review of 154 parenchymal and endobronchial cases. *Thorax* 1987; 42:790-3.
9. Ribet M, *et al.* Pulmonary hamartoma and malignancy. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1994; 107:611-4.
10. Tomashefski JF. Benign endobronchial mesenchymal tumors: their relationship to parenchymal pulmonary hamartomas. *Am J Surg Pathol* 1982; 6:531-40.