

Letters to the Editor

Hydatid Cyst Case Imitating Thoracic Wall Malignancy



Caso de quiste hidatídico que imitaba una neoplasia de la pared torácica

Dear Editor,

Hydatid cyst disease (hydatidosis or echinococcosis) is a parasitic disease found in farming communities, notably in South America, North Africa, the Middle East, the Mediterranean and Eastern and Central Anatolia.¹ It is most frequently seen in the liver (60%–70%) and lungs (20%–30%). Intrathoracic extrapulmonary involvement is rare.² The rate of recurrence following surgical removal of lung or liver hydatid cysts has been to be between 1.4% and 11%.³ This report describes a case of a hydatid cyst imitating thoracic wall malignancy.

A 67-year-old male, non-smoker, a native of Ağrı (Eastern Anatolia), was admitted to our clinic with a 3-month history of cough and loss of appetite. Physical examination showed diminished breath sounds. Laboratory findings were within normal limits. Chest X-ray revealed a homogenous density adjacent to the right chest wall. Chest computed tomography (CT) showed a 52 × 28 mm extrapleural mass in the thoracic wall destroying the anterior right sixth rib (Fig. 1). Suspecting thoracic wall malignancy, transthoracic fine needle aspiration biopsy (TTFNAB) was performed. The cytology report indicated “homogenous eosinophilic lamellar material of a hydatid cyst closely surrounded by scolices”. The patient underwent surgery to remove the cyst. Postoperative 15–20 mg/kg/day albendazole treatment was initiated and finalized at 12 weeks. After 2 years of follow-up, the patient has not shown any sign of recurrence.

Hydatid cyst disease is usually asymptomatic, and is diagnosed after combined clinical, radiological, and specific laboratory tests.⁴ The metastasis of hydatid cyst in costa is generally slow, and laboratory tests are usually negative. In our case, specific laboratory studies for hydatid cyst were not performed, since thoracic wall tumor (osteosarcoma) was strongly suspected on the CT image of rib destruction, and TTFNAB was used to establish definitive diagnosis, even though guidelines recommend avoiding this technique in order to prevent tumor spread and minor or major allergic reactions.

In cases of recurrence of chest wall hydatid cyst, the fundamental principle in surgical therapy is the removal of the affected ribs or the chest wall.⁵ In our case the affected sixth rib was partially removed.

Treatment with mebendazole or albendazole is effective for pulmonary hydatid cysts in up to 70% of cases. Antihelmintics are known to cause degenerative changes in the cyst membrane and cyst rupture. Unlike the liver, the lung environment is not



Fig. 1. Chest computed tomography showing extrapleural localized mass destroying the anterior right sixth rib.

aseptic, so even if the parasite perishes, cyst membrane persisting in lung cavities can lead to secondary bacterial infection and other complications, including anaphylactic reaction, asphyxia, tension pneumothorax and massive hemoptysis. Preoperative albendazole may increase the risk of perforation in cases of pulmonary hydatid cysts, and we do not recommend this therapy. Medical treatment is recommended for patients who can not tolerate or who do not accept surgery.⁵ In our case, the treatment was finalized with postoperative oral albendazole.

Thoracic wall involvement in hydatid cyst disease is rare. For this reason, we believe this description of a definitive diagnosis of this phenomenon to be of interest, particularly in areas where hydatid disease is more frequently encountered.

References

1. Umüt S, Saryal BS. Türk toraks derneği paraziter akciğer hastalıkları tanı ve tedavi uzlaşısı raporu. *Türk Toraks Dergisi*. 2009;10 Suppl.:8–9.
2. Seghal S, Mishra B, Thakur A, Dogra V, Loomba PS, Banerjee A. Hydatid cyst of mediastinum. *Indian J Med Microbiol*. 2008;26:80–1.
3. Ergönül AG, Akçam Tİ, Çakan A, Çağırıcı U. Intrathoracic extraparenchymal recurrent giant hydatid cyst. *Ege Tıp Dergisi/Ege J Med*. 2013;52:121–3.

4. Karaođlanođlu N, Gorguner M, Erođlu A. Hydatid disease of rib. *Ann Thorac Surg.* 2001;71:372-3.
5. Cobanoglu U, Sayir F, Őehitoglu A, Bilici S, Melek M. Therapeutic strategies for complications secondary to hydatid cyst rupture. *Int J Clin Exp Med.* 2011;4:220-6.

Miklat Arif Haberal^a, ŐzlemŐengŐren DikiŐ^{b,*}, GŐkhan Őztürk^a

^a Health Sciences University Bursa YŐksekŐhtisas Education & Research Hospital, Thoracic Surgery Department, Bursa, Turkey

^b Health Sciences University Bursa YŐksekŐhtisas Education & Research Hospital, Pulmonary Diseases Department, Bursa, Turkey

* Corresponding author.

E-mail address: ozlemsengoren@hotmail.com (Ő. DikiŐ).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.arbres.2017.01.009>
0300-2896/

© 2017 SEPAR. Published by Elsevier EspaŐa, S.L.U. All rights reserved.

Hallazgo incidental de agenesia de la arteria pulmonar derecha en el adulto



Incidental Finding of Right Pulmonary Artery Agenesis in an Adult

Estimado Director:

La agenesia de una arteria pulmonar es una enfermedad poco frecuente con una prevalencia de uno entre 200.000 adultos. Se asocia a anomalías cardiovasculares siendo diagnosticada en la infancia. En ocasiones pueden permanecer asintomáticos hasta la edad adulta sin asociarse a otras complicaciones.

Presentamos el caso de un varŐn de 47 aŐos, derivado a la consulta de neumologŐa tras observar en una radiografŐa de tŐrax, realizada de forma rutinaria, la elevaciŐn del hemidiafragma derecho (fig. 1). Era exfumador, sin otros antecedentes de interŐs. No referŐa ninguna sintomatologŐa.

Se solicitŐ una ecografŐa torácica en la que se observaba una elevaciŐn del hemidiafragma derecho, sin apreciarse movimiento paradŐjico del mismo.

La tomografŐa computarizada (TC) de tŐrax (fig. 1), mostrŐ hallazgos compatibles con agenesia de la arteria pulmonar derecha, asŐ como un escaso desarrollo del pulmŐn derecho y una eventraciŐn compensadora del pulmŐn contralateral. Se completŐ el estudio con una cardiorensonancia magnŐtica (fig. 1) que fue descrita como agenesia de la arteria pulmonar derecha y agenesia parcial del pulmŐn derecho, manteniŐndose un lŐbulo superior derecho con drenaje venoso por Őnica vena pulmonar derecha a aurŐcula izquierda, sin evidenciarse arteria que nutriera dicho lŐbulo ni evidencias de cortocircuitos ni otras alteraciones. Una ecocardiografŐa descartaba la presencia de hipertensiŐn pulmonar.

Dado que el paciente estaba asintomático se decidiŐ realizar tratamiento conservador con seguimiento clŐnico en la consulta de neumologŐa.

La agenesia de la arteria pulmonar unilateral es una anomalŐa congŐnita rara, secundaria a una anomalŐa en la rotaciŐn y la

migraciŐn del sexto arco aŐrtico primitivo en la cuarta o quinta semana del desarrollo embrionario. La ausencia de la arteria pulmonar derecha es mŐs frecuente que la rama izquierda. En funciŐn de la clŐnica se clasifican en 3 grupos¹: el grupo I, desarrolla un *shunt* izquierda-derecha diagnosticado en la infancia. El grupo II, presentan hipertensiŐn pulmonar severa, estos suelen fallecer en los primeros meses de vida. El grupo III, corresponde a adultos con pocas manifestaciones. La sintomatologŐa mŐs frecuente en el adulto es la disnea, dolor torácico, hemoptisis o infecciones recurrentes, desarrollando hipertensiŐn pulmonar un 44% de los pacientes².

Esta enfermedad es generalmente diagnosticada en la niŐez, asociada a otras malformaciones cardiovasculares. La sospecha diagnŐstica en la edad adulta puede sugerirse tras una radiografŐa de tŐrax anormal³. Como prueba diagnŐstica definitiva debe realizarse una TC con contraste y/o resonancia magnŐtica y/o estudios angiogrŐficos.

No hay consenso sobre el tratamiento. Algunos autores han recomendado el uso de ecocardiografŐas seriadas para monitorizar el desarrollo de hipertensiŐn pulmonar⁴. En estos casos, el tratamiento con vasodilatadores especŐficos o la revascularizaciŐn del pulmŐn afectado puede mejorar la evoluciŐn del paciente⁵. Cuando las infecciones pulmonares son recurrentes o hay hemoptisis severa estŐ indicado la lobectomŐa o la neumonectomŐa.

A pesar de ser una entidad poco frecuente debe de ser considerada en el diagnŐstico diferencial de adultos que presenten infecciones pulmonares recurrentes o hemoptisis, siendo la radiografŐa de tŐrax una herramienta Őtil para el diagnŐstico inicial que deberŐ confirmarse mediante una TC con contraste o una resonancia magnŐtica.

Agradecimientos

Al Servicio de NeumologŐa del Hospital Universitario Virgen de la Victoria, especialmente al Dr. Juan Antonio Romero Arias.



Figura 1. A) RadiografŐa de tŐrax en la se aprecia elevaciŐn del hemidiafragma derecho. B) ReconstrucciŐn del TAC donde se observa la ausencia de la arteria pulmonar derecha. C) Corte de cardiorensonancia magnŐtica con agenesia de la arteria pulmonar derecha y agenesia parcial del pulmŐn derecho.