

KÉN PHẾ QUẢN CỔ: THÔNG BÁO TRƯỜNG HỢP LÂM SÀNG

*Nguyễn Sĩ Khánh**, *Đình Văn Tuấn**, *Đình Văn Lượng**, *Nguyễn Công Hựu***,
*Nguyễn Thành Long**, *Ngô Thế Quân**, *Đỗ Trọng Nghĩa**,
*Đàm Tọa**, *Nguyễn Chi Lăng**, *Lê Ngọc Thành***

Tóm tắt:

Kén phế quản là bệnh lý bẩm sinh ít gặp và là hậu quả do sự rối loạn phát triển của cây khí- phế quản thời kỳ bào thai, thường gặp ở phổi và trung thất. Chúng có nguy cơ gây suy hô hấp ở trẻ nhỏ do chèn ép, tuy nhiên với người lớn chúng ít khi có biểu hiện lâm sàng. Nếu có thì biểu hiện một cách đa dạng phụ thuộc vào mức độ chèn ép và bội nhiễm. Chúng tôi thông báo một trường hợp bệnh nhân nữ 47 tuổi với triệu chứng đau tức vùng cổ và đôi khi có sốt gây ra bởi một kén phế quản vùng cổ hiếm gặp.

Abstract:**A Cervical Bronchogenic Cyst: Case report and review of literature**

Bronchogenic cysts occur as a result of a developmental fault during the division and budding of the tracheobronchial tree in the embryonic period. They are usually located in the mediastinum and intrapulmonary regions. They may cause serious respiratory distress in childhood because of compression; they present less commonly in adults and often present with a variety of symptoms, including recurrent infections. We report the case of a 47 years old adult female patient who presented with pain and fever occasionally because of a bronchogenic cyst that was unusually located in the cervical region.

Key words: bronchogenic cyst, bronchial cyst, neck, cervical

ĐẶT VẤN ĐỀ

Kén phế quản là bệnh lý bẩm sinh ít gặp và là hậu quả do sự rối loạn phát triển của mầm

thanh quản- khí quản thời kỳ bào thai. Mầm thanh quản - khí quản phát triển từ ống tiêu hoá nguyên thủy vào khoảng ngày thứ 26 của thai kỳ. Hình dáng lúc này của hệ hô hấp được gọi là túi thừa khí- phế quản, túi thừa tiếp tục phân chia và tạo thành vách ngăn khí quản- thực quản. Sự rối loạn phát triển của mầm thanh quản- khí quản có thể sớm hoặc muộn và sẽ quyết định vị trí sau này của kén phế quản. Nếu xảy ra sớm, kén phế quản thường gặp ở phổi và trung thất còn xảy ra muộn thì kén phế quản hay gặp ở ngoại vi như da, tổ chức dưới da hay vùng cổ [9].

Ngoài ra với nguồn gốc phôi thai như vậy, kén phế quản cũng có thể gặp ở thực quản, luỡi, màng ngoài tim, cơ hoành, vùng cạnh sống, vùng dưới màng phổi, trong ổ bụng, vùng mũi hầu và thậm chí cả trong tuỷ sống [9].

TRƯỜNG HỢP LÂM SÀNG

Bệnh nhân nữ 47 tuổi, vào viện với một khối phòng vùng cổ trước bên phải kích thước khoảng 3×4cm, nằm giữa sụn giáp và đầu trong xương đòn phải, chưa vượt quá đường giữa cổ, bờ ngoài sát với cơ ức đòn chũm. Khối xuất hiện từ 5 năm trước với triệu chứng gây đau tức vùng cổ và sốt thành từng đợt, bệnh nhân không khó thở, không ho và không nuốt nghẹn. Thương tổn có mật độ mềm, di động và không gia tăng về kích thước từ khi phát hiện bệnh đến nay.

** Trung tâm tim mạch- Bệnh viện E

Người chịu trách nhiệm khoa học: TS Đình Văn Lượng

Ngày nhận bài: 08/08/2013 -

Ngày Cho Phép Đăng: 16/08/2013

Phản Biện Khoa học: PGS.TS. Đặng Ngọc Hùng

PGS.TS. Lê Ngọc Thành

Tiền sử trước đó bệnh nhân đã được chọc hút bằng kim nhỏ chẩn đoán tế bào cho kết quả âm tính tại Bệnh viện Bạch Mai, điều trị triệu chứng

bằng chọc hút dịch trong kén (dịch màu nâu bẩn) kết hợp với kháng sinh mỗi khi có sốt tại Bệnh viện Nội tiết trung ương.



Phim XQuang ngực



Phim CLVT lồng ngực



Hình 1. Hình ảnh Xquang và CLVT

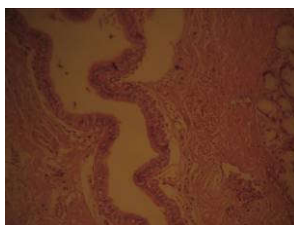
Các xét nghiệm cơ bản: công thức máu, sinh hoá máu, chức năng hô hấp... trong giới hạn bình thường. Siêu âm tuyến giáp, soi thực quản và khí phế quản không thấy gì đặc biệt. Cắt lớp vi tính (CLVT) xác nhận từ ngay dưới thùy phải tuyến giáp trở xuống qua nền cổ đến ngang mức đốt sống D4 có một kén khí gồm nhiều thùy và vách không hoàn toàn, ranh giới rõ, kích thước đường kính ngang 35mm, đường kính trên dưới 68mm, áp sát bờ phải khí quản, lách giữa khí quản và mặt trước cột sống trên đoạn dài 55mm kể từ bờ dưới tuyến giáp. Không có dấu hiệu thông với khí quản hay thực quản (**Hình 1**).

Chẩn đoán trước mổ là kén khí vùng cổ-trung thất có triệu chứng, nghĩ đến kén phế

quản, bệnh nhân được mổ cắt kén với đường rạch da vùng cổ song song với xương đòn và cách xương đòn 2cm. Phần tích và bộc lộ kén: kén nằm ngay dưới thùy phải tuyến giáp, có dây động mạch cảnh ra phía ngoài và ra trước, kén lách vào khe giữa khí quản và thực quản; 1/3 dưới của kén nằm trong trung thất trên sát với quai động mạch chủ, kích thước của kén khoảng 3,5×6,5cm. Kén này không có cuống, đã được phẫu tích và cắt toàn bộ kén mà không phải bỏ xương ức. Giải phẫu bệnh vi thể sau đó mô tả thấy cấu trúc biểu mô trụ giả tầng có lông chuyển, lớp hạ niêm mạc có cấu trúc tuyến chế nhầy, tổ chức liên kết tăng sinh mạnh, xen lẫn có các mao quản (**Hình 2**). Chẩn đoán xác định sau mổ là kén phế quản vùng cổ- trung thất.



Hình ảnh đại thể



Hình ảnh vi thể với biểu mô trụ giả tầng có lông chuyển



Hình 2. Hình ảnh vi thể

BÀN LUẬN

Kén phế quản lần đầu tiên được thông báo bởi Blackader năm 1911 [7]. Năm 1945, Seybold và Clagett mô tả về trường hợp kén phế quản ở vùng da trên hõm ức [6]. Sau đó năm 1948 Maier đưa ra cách phân loại kén phế quản dựa vào vị trí (Cạnh khí quản, carina, rốn phổi, cạnh thực quản và không điển hình) [2]. Trường hợp kén phế quản vùng cổ đầu tiên được thông báo bởi Oakley và cộng sự năm 1955 [6]. Đến năm 2011 mới có tất cả là 31 trường hợp kén phế quản vùng cổ được ghi nhận trong y văn [3].

Kén phế quản là một bất thường ít gặp với tỷ lệ từ 1/42000- 1/68000 những trường hợp nhập viện. Chúng nằm chủ yếu ở trung thất và phổi, chiếm khoảng 14- 22% tổng số bệnh lý phổi bẩm sinh và khoảng 3,3% các tổn thương trung thất [8]. Tỷ lệ Nam/Nữ là 2,2/1, 62% bệnh nhân được chẩn đoán ở độ tuổi >15 [3].

Kén phế quản vùng cổ rất hiếm gặp, lâm sàng khó phân biệt với những tổn thương dạng kén khác do vị trí, dấu hiệu lâm sàng và chẩn đoán hình ảnh cũng như diễn biến bệnh giữa chúng tương đối giống nhau. Thường là trước mổ chưa có chẩn đoán xác định hoặc chẩn đoán nhầm với những bệnh lý khác. Tuy nhiên khi xuất hiện một kén vùng cổ thì đây là một dấu hiệu bệnh lý, các chẩn đoán phân biệt cần đặt ra là: nang tuyến giáp, rò khe mang, dị dạng mạch bạch huyết, kén nang bì và nang tuyến ức. Việc thăm khám kỹ kết hợp với các xét nghiệm cận lâm sàng đôi khi cũng giúp chẩn đoán xác định ở một số trường hợp trước mổ [3], [4], [5].

Về lâm sàng, ở trẻ em thì hầu hết kén phế quản gây ra triệu chứng. Ngược lại, kén phế quản thường là không có triệu chứng ở người lớn. Tùy thuộc vào kích thước, vị trí và mức độ chèn ép của kén mà có thể gây ra đau tức, khó thở, ho hoặc khó nuốt. Đôi khi, chúng trở nên nhiễm trùng gây sốt và dẫn lưu ra ngoài nếu ở bề mặt và tạo áp xe nếu ở sâu. Ngoài ra, chúng có thể gây

biến chứng vỡ, chảy máu hoặc thoái hoá ác tính. Vì những nguy cơ này nên phẫu thuật cắt bỏ được khuyến cáo [4], [5], [8].

Chẩn đoán hình ảnh có thể hữu ích trong việc phân biệt kén phế quản với những tổn thương kén vùng cổ khác song không có giá trị xác định. Trong khi siêu âm khảo sát và loại trừ thương tổn của tuyến giáp thì CLVT đánh giá về vị trí, tính chất và sự liên quan của thương tổn với những thành phần giải phẫu xung quanh. Trên CLVT kén phế quản có dạng hình tròn hoặc oval, bờ mềm mại và rõ nét, đồng nhất về tỷ trọng và không ngấm thuốc sau tiêm hoặc có mức dịch khí. Sự thông thương giữa kén phế quản với cây khí phế quản hoặc thực quản là rất hiếm và thường gặp ở những kén phế quản trong nhu mô phổi. Khi có mức dịch khí, bệnh nhân có thể có dấu hiệu nhiễm trùng từng đợt. Cộng hưởng từ có vai trò trong việc phân biệt một tổn thương bệnh lý tăng tỷ trọng (ở đây là kén phế quản) với tổ chức mô mềm. Các phương pháp chẩn đoán xâm lấn như chọc hút dịch trong kén, sinh thiết tổ chức kén bằng kim nhỏ để chẩn đoán tế bào cũng đã được đề cập song giá trị thông tin mang lại là thấp và tiềm ẩn nguy cơ nhiễm trùng [5], [8]. Bệnh nhân của chúng tôi lâm sàng có đau tức vùng cổ và sốt từng đợt tuy nhiên khi đến với chúng tôi thì không còn sốt, CLVT chỉ thấy một kén có vỏ mỏng trong chứa khí mà không có dịch vì trước đó đã được chọc hút và điều trị kháng sinh ở tuyến trước.

Chẩn đoán xác định kén phế quản đòi hỏi phải dựa vào giải phẫu bệnh của thương tổn, bao gồm: biểu mô trụ giả tầng có lông chuyển, sụn, tuyến chế nhầy và những dải cơ. Trong một số trường hợp, tổ chức sụn và tuyến chế nhầy có thể vắng mặt. Quá trình nhiễm trùng thứ phát gây viêm dẫn tới phá hủy lớp biểu mô gây khó khăn trong việc chẩn đoán đặc biệt khi không có sự xuất hiện của tổ chức sụn trong thành kén [2], [5]. Giải phẫu bệnh trong trường hợp của chúng tôi là

kén phế quản không điển hình do thiếu đi yếu tố quan trọng nhất là tổ chức sụn.

Phẫu thuật cắt bỏ cho phép điều trị triệt để thương tổn kén phế quản. Nguy cơ phẫu thuật thường thấp và việc cắt bỏ thương tổn giúp chẩn đoán xác định. Dẫn lưu dịch dưới da bằng catheter và bơm còn là các phương pháp điều trị thay thế cho những bệnh nhân có nguy cơ cao nếu phẫu thuật [1], [5].

Sự liên quan giữa kén phế quản với những dị tật bẩm sinh khác hiếm khi xảy ra ngoại trừ những kén phế quản vùng cổ nơi mà có thể xảy ra đồng thời với dị dạng tuỷ sống. Các dị tật liên quan khác như dạ dày hay khí quản đôi đã được thông báo [6].

Bệnh nhân của chúng tôi nhập viện với một khối phồng vùng cổ phải có triệu chứng đau do chèn ép, đôi khi có sốt đã được điều trị nội khoa trước mổ ổn định, chỉ chẩn đoán xác định được là kén phế quản sau mổ dựa vào giải phẫu bệnh, trong mổ không thấy có sự thông thương với khí quản cũng như thực quản. Phẫu thuật được thực hiện tỷ mỉ, thận trọng, bóc tách giải phóng khỏi những thành phần quan trọng và cắt toàn bộ kén. Kết quả sớm sau mổ bệnh nhân hồi phục tốt và không có biến chứng.

KẾT LUẬN

Kén phế quản vùng cổ là bệnh lý bẩm sinh hiếm gặp và khó chẩn đoán, dễ nhầm với những bệnh lý khác, thường chỉ có chẩn đoán xác định sau mổ dựa vào giải phẫu bệnh. Việc nghĩ đến kén phế quản với những tổn thương dạng kén ở vùng cổ là cần thiết vì những tổn thương này cần phải can thiệp phẫu thuật để phòng ngừa biến chứng.

TÀI LIỆU THAM KHẢO

1. **Bilal Kirmani, Basitt Kirmani, Franco Sogliani (2010)**, “Should asymptomatic bronchogenic cysts in adults be treated conservatively or with surgery?”, *Interactive CardioVascular and Thoracic Surgery*; 11: 649- 659.
2. **Herbert C. Maier (1948)**, “*Bronchiogenic cysts of the mediastinum*”, *Annals of Surgery*; 127(8): 476- 502.
3. **Lucia Mercedes N, Cindy Arteta- Acosta, Katherine R et al (2011)**, “*Cervical bronchogenic cyst mimicking thyroglossal cyst*”, *Cir Cir*; 79: 330- 333.
4. **Moz U, Gamba P, Pignatelli G, D’Addazio G, Zorzi F, Fiaccavento S, et al (2009)**, “*Bronchogenic cysts of the neck: a rare localization and review of the literature*”, *Acta Otorhinolaryngol Ital*; 29:36-40.
5. **Natacha Teissier, Monique Elmaleh, Latifa Ferkdadji et al (2008)**, “*Cervical Bronchogenic Cysts: Usual and Unusual Clinical Presentations*”, *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*;134(11):1165-1169.
6. **Park OK, Buford CH (1955)**, “*Bronchogenic cyst of neck and superior mediastinum*”, *Ann Surg*; 142:130-133.
7. **Pérez J, Gabrielli M, Felmer O, Carrasco C (2008)**, “*Quiste broncogénico cervical. Reporte de un caso*”, *Rev Chil Cir*; 60:51-54.
8. **Sanli A, Onen A, Ceylan E, Yilmaz E, Silistreli E, Acikel U (2004)**, “*A case of a bronchogenic cyst in a rare location*”, *Ann Thorac Surg*; 77:1093-1096.
9. **Villafañe V, Lespi P (2010)**, “*Quiste broncogénico cutáneo*”, *Patol Rev Latinoam*; 48:115-117