

Traqueopatia osteocondrolástica em cães - Relato de caso*

Ticiania do Nascimento França¹⁺, Samay Zillmann Rocha Costa², Tiago da Cunha Peixoto³, Vivian Assunção Nogueira¹, Mariana Sequeira d'Avila², Mariana Bezerra Mascarenhas² e Paulo Vargas Peixoto⁴

ABSTRACT. Franca T.N., Costa S.Z.R., Peixoto T. da C., Nogueira V.A., d'Avila M.S., Mascarenhas M.B. & Peixoto P.V. [**Tracheopathia osteochondroplastica in dogs - Case report.**] Traqueopatia osteocondrolástica em cães - Relato de caso. *Revista Brasileira de Medicina Veterinária* 38(Supl.1):75-78, 2016. Departamento de Epidemiologia e Saúde Pública, Instituto de Veterinária, Universidade Federal Rural do Rio de Janeiro, Seropédica, RJ 23890-000, Brasil. E-mail: ticianafanca19@gmail.com

The tracheopathia osteochondroplastica is a rare condition in people, and in animals has been reported only in Korea and the USA. In humans this disease is often asymptomatic. The present study describes this disorder in two dogs. Grossly, small, rounded, firm and whitish nodules with approximately 0.2 cm in diameter was observed in the wall of the trachea. Histopathological examination reveals foci of proliferation of cartilaginous tissue with mineralization areas in the submucosa of the trachea.

KEY WORDS. Pathology, trachea, dogs.

RESUMO. A traqueopatia osteocondrolástica é uma condição rara no homem, e em animais foi descrita apenas na Coreia e nos EUA. Em seres humanos esta enfermidade é frequentemente assintomática. Este estudo tem como objetivo descrever dois casos de TO em cães. Macroscopicamente, foram observados nódulos multifocais pequenos, arredondados, esbranquiçados, firmes, com aproximadamente 0,2 cm de diâmetro, salientes na mucosa da traqueia. O exame histopatológico revelou focos de proliferação de tecido cartilaginoso com áreas de mineralização na submucosa da traqueia.

PALAVRAS-CHAVE. Patologia, traqueia, cães.

INTRODUÇÃO

A traqueopatia osteocondrolástica (TO) é uma condição rara no homem (Leske et al. 2001, Mboti

et al. 2005) e nos animais (Joonki et al. 2000, Sellon et al. 2004, Spanton et al. 2008), caracterizada pela formação de numerosos nódulos, constituídos de tecido cartilaginoso, ósseo e osteocartilaginoso na submucosa da traqueia, que se projetam para o lúmen (Leske et al. 2001, Faig-Leite & Defaveri 2008) e metaplasia escamosa do epitélio (Leske et al. 2001). Esses nódulos são frequentemente encontrados na porção anterior e lateral da parede da traqueia e dos brônquios e, menos comumente, na laringe (Leske et al. 2001). Em seres humanos, essa enfermidade afeta geralmente indivíduos entre 50 e 70 anos de idade (Bioque et al. 2001), entretanto já foi relatada em crianças com sintomatologia respiratória (Simsek et al. 2006).

A TO foi descrita inicialmente em meados do século XIX (Wilks 1857, Virchow 1863, Luschka et al. 1937, Rokitsky & Dalgaard 1947). Em 1863,

* Recebido em 17 de março de 2016.

Aceito para publicação em 31 de março de 2016.

¹ Médica-veterinária, DSc. Departamento de Epidemiologia e Saúde Pública, Instituto de Veterinária (IV), Universidade Federal Rural do Rio de Janeiro (UFRRJ), BR 465 Km 7, Seropédica, RJ 23890-000. E-mail: vivianmedvet@yahoo.com.br; * Autora para correspondência: ticianafanca19@gmail.com

² Médico-veterinário, Programa de Pós-Graduação em Medicina Veterinária, IV, UFRRJ, BR 465 Km 7, Seropédica, RJ 23890-000 E-mails: samayzillmann@gmail.com; mariana_davila@hotmail.com; mm.bezerra@yahoo.com

³ Médico-veterinário, DSc. Departamento de Patologia e Clínicas, Escola de Medicina Veterinária e Zootecnia, Universidade Federal da Bahia, Av. Adhemar de Barros, 500, Ondina, Salvador, BA 40170-110. E-mail: tpeixoto@ufba.br

⁴ Médico-veterinário, DSc. Departamento de Nutrição e Pastagem, Instituto de Zootecnia, UFRRJ, BR 465 Km 7, Seropédica, RJ 23890-000. E-mail: pfpeixoto19@gmail.com

Virchow classificou esta lesão como econdromas na traqueia que mais tarde se ossificavam e calcificavam; Aschoff (1910) descreveu-a como uma metaplasia do tecido elástico das vias aéreas.

Em geral, essa enfermidade no homem é um achado incidental observado durante o exame necroscópico, com ocorrência de três casos a cada 1000 necropsias (Park et al. 1995). A TO também pode ser diagnosticada pela broncoscopia durante a investigação diagnóstica de outras doenças - uma a cada 3.720 broncoscopias evidenciam essa lesão (Park et al. 1995) - ou tomografia computadorizada (Leske et al. 2001). O diagnóstico também pode ser realizado após dificuldade de intubação do paciente (Coëtmour et al. 1997), sem que essa alteração seja a causa de qualquer distúrbio prévio.

No homem, a doença é frequentemente assintomática (Swamy & Hasan 2010), porém ocasionalmente têm sido relatados dispneia, tosse, expectoração, hemoptise, febre, rouquidão, disfagia e episódios de pneumonia que podem variar de acordo com a extensão da lesão (Polk & Cubiles 1958, Simsek et al. 2006).

Dados referentes a TO em cães são escassos. Na literatura consultada, não foram encontradas descrições da doença no Brasil e, na literatura internacional, existem apenas dois relatos. Nos EUA, a enfermidade foi descrita em um West Highland White Terrier com nove anos de idade, que apresentava dispneia após o exercício (Sellon et al. 2004). Enquanto que na Coreia do Sul, a lesão foi descrita em cinco cães da raça Pastor Alemão (Joonki et al. 2000). Em todos os casos, a necropsia revelou múltiplos nódulos na superfície da traqueia e o diagnóstico foi confirmado através do exame histopatológico. Com relação a outras espécies, há relato em um pônei de cinco anos com obstrução intraluminal e posterior ruptura de traqueia secundária à presença de múltiplos nódulos (Spanton et al. 2008).

O objetivo deste trabalho é relatar dois casos de TO em cães no Brasil, bem como descrever os achados anátomo-histopatológicos.

HISTÓRICO

Entre outubro de 2008 e abril de 2011, foram encaminhados, logo após a morte, dois cães, sendo um Chow-Chow macho com dois anos de idade e uma cadela SRD, sem histórico com sete anos de idade, ao Setor de Anatomia Patológica da Universidade Federal Rural do Rio de Janeiro (UFRRJ) para serem necropsiados.

Macroscopicamente, foram observados no primeiro cão (Chow-Chow) múltiplos nódulos, es-

branquiçados, firmes, com aproximadamente 0,2 cm de diâmetro, salientes na mucosa da traqueia (protraíam para o lúmen traqueal), sobre consecutivos anéis traqueais (Figura 1). Por vezes, em um mesmo anel traqueal havia de um a dez nódulos, em geral, alinhados e com nítida delimitação entre eles, distribuídos entre o décimo e o vigésimo anéis traqueais. Adicionalmente, verificaram-se palato mole alongado, estenose nasal, leve hidrotórax, dilatação do coração direito, congestão hepática e renal e esplenomegalia. No segundo cão (SRD), o exame necroscópico revelou pequenos nódulos multifocais localizados no terço anterior da traqueia com as mesmas características macroscópicas observadas no primeiro animal. Havia ainda uma massa de consistência firme no úmero (osteossarcoma), leve dilatação do ventrículo direito, numerosos nódulos esbranquiçados e firmes no fígado, omento e baço (metástases de osteossarcoma), pequenas erosões e uma úlcera de 0,6 cm de diâmetro no estômago e mineralização das meninges.

Durante a necropsia, fragmentos da traqueia dos dois animais foram colhidos, fixados em formol a 10%, processados rotineiramente, incluídos em parafina, cortados a 5µ e corados pela hematoxilina-eosina. Microscopicamente, nos dois casos, observaram-se focos de proliferação de tecido cartilaginoso bem diferenciado com áreas de mineralização na submucosa da traqueia (Figura 2).

DISCUSSÃO

A etiologia e o mecanismo que induzem à formação dos nódulos na TO permanecem desconhecidos. A influência de fatores genéticos como possível causa da enfermidade já foi questionada devido à descrição da doença em indivíduos da mesma família (Prakash et al. 1989). Além disso, evidenciou-se o alongamento do braço curto Y do cromossomo em um paciente com TO (Zamani et al. 1998). Alguns autores sugerem que econdrose e exostose da cartilagem dos anéis traqueais ou metaplasia da submucosa e do tecido conectivo teriam papel no desenvolvimento da lesão, porém ainda não há estudos suficientes para a comprovação dessas hipóteses (Lazor & Cordier 2004).

Outras condições parecem estar associadas a TO, tais como processo inflamatório crônico (sugere-se que alterações no *clearance* das vias aéreas favorecem o início da doença, após um processo inflamatório persistente, resultando em infecções de repetição), anomalias congênitas, irritação química ou mecânica, doenças degenerativas e metabólicas e estágio final de amiloidose primária (Pinto et al.



Figura 1. Canino, SRD. Múltiplos nódulos pequenos, medindo cerca de 0,2 cm de diâmetro, esbranquiçados, firmes, salientes na mucosa da traqueia.

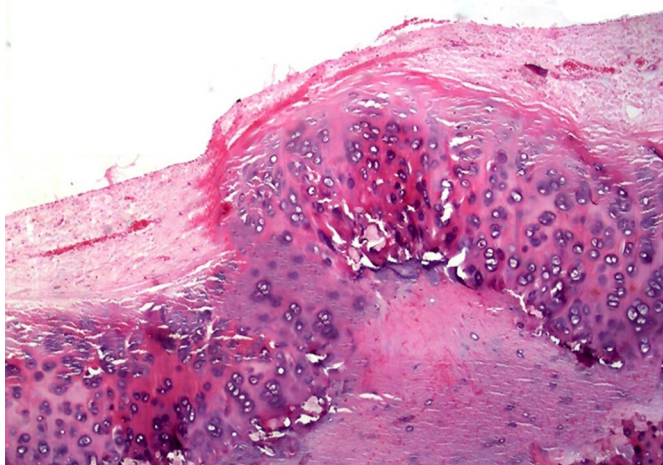


Figura 2. Canino, SRD. Focos de proliferação de tecido cartilaginoso com áreas de mineralização na submucosa da traqueia. HE, Obj. 20X.

2010). Alguns estudos ainda correlacionam a TO com infecções crônicas ou recorrentes não específicas do sistema respiratório (Leske et al. 2001) e neoplasias (Bioque et al. 2001).

Tajima et al. (1997) detectaram pela técnica de imuno-histoquímica, a proteína morfogênica óssea (BMP-2) e o fator transformador do crescimento (TGF- β 1) e concluíram que a proteína BMP-2 e o TGF- β 1 atuam sinergicamente na formação dos nódulos osteocartilaginosos característicos da TO.

Em seres humanos há relatos de dificuldade na intubação e problemas respiratórios após extubação no pós-operatório imediato devido ao estreitamento do lúmen causado pelos nódulos (Thomas et al. 2001, Cardozo et al. 2002). Além disso, dispnéia com tosse persistente e ocasional hemoptise também são descritas no homem (Hussain & Gilbert 2003), bem como no cão da raça West Highland

White Terrier (Sellon et al. 2004) acometidos por TO. Contudo, embora o histórico clínico não tenha sido informado, é possível que os animais desse estudo possam ter manifestado algum grau de dificuldade respiratória, embora o histórico clínico não tenha sido informado.

Os achados macroscópicos (múltiplos pequenos nódulos esbranquiçados firmes no lúmen traqueal) dos cães deste estudo, se assemelham ao observado por Joonki et al. (2000) e Sellon et al. (2004), inclusive quanto à localização. Contudo no exame histopatológico, esses mesmos autores descreveram proliferação de tecido cartilaginoso e ósseo, enquanto que neste relato havia proliferação apenas de tecido cartilaginoso com focos de mineralização.

Os principais diagnósticos diferenciais incluem tecido de granulação pós-intubação, inflamação granulomatosa crônica (tuberculose, sarcoidose, infecção fúngica), amiloidose multinodular focal, papilomatose e neoplasias (Swamy & Hasan 2010). Em cães, traqueíte polipóide crônica, infecções por *Oslerus (Filaroides) osleri*, neoplasias traqueais e amiloidose traqueal também podem levar à formação de nódulos na traqueia (Dill et al. 1972, López 2007). Neoplasias traqueais geralmente não apresentam este padrão macroscópico (pequenos nódulos esbranquiçados alinhados no lúmen traqueal), são bem raras e incluem osteocondroma, leiomioma, osteossarcoma, mastocitoma ou carcinoma. No caso de nódulos formados por parasitas, seria observada reação mononuclear discreta acompanhada da presença do agente, ou dependendo do caso, intensa reação inflamatória do tipo corpo estranho com neutrófilos e células gigantes. Além disso, o depósito de amilóide é relatado esporadicamente na cavidade nasal de equinos e seres humanos e há formação de grandes nódulos firmes semelhantes a neoplasias e microscopicamente ocorre depósito de material amilóide hialino na mucosa (López 2007). Todos os diagnósticos diferenciais foram excluídos, em ambos os casos, com auxílio da avaliação histopatológica minuciosa.

CONCLUSÃO

As alterações macroscópicas em adição à histopatologia são consistentes com o diagnóstico de TO. Devido à inespecificidade ou até mesmo ausência de sinais clínicos a real incidência de TO nos animais pode estar subestimada, pois muitas vezes, não há possibilidade de exames como broncoscopia e tomografia na rotina clínica. A etiologia e o mecanismo deste distúrbio, permanecem desconhecidas e mais estudos devem ser realizados a fim de caracterizá-lo nos animais domésticos.

REFERÊNCIAS

- Aschoff L. 1910. Über Tracheopathia osteoplastica. *Verhandlungen der Deutschen Pathologischen Gesellschaft*, 14:125.
- Bioque J.C., Feu N., Rubio J.M., Martín M.A., García F.L., Bravo, J.M., Alvarez A., Villar C. & Muñoz L. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica. Clinical Study and Follow-Up in Nine Cases. *Journal of Bronchology*, 8:78-83, 2001.
- Cardozo M.D., Correa M.A., Álvares R.M. & Hincapié G. Traqueopatia osteocondroplástica presentación de um caso. *Acta de Otorrinolaringología e Cirugía de Cabeza y Cuello*, 30:99-101, 2002.
- Coëtmeur D., Bovyn G., Leroux P. & Duriez-niel M. Tracheobronchopathia osteochondroplastica presenting at the time of a difficult intubation. *Respiratory Medicine*, 91:496-498, 1997.
- Dill G.S., Stookey J.L. & Whitney G.D. Nodular amyloidosis in the trachea of a dog. *Veterinary Pathology*, 9:238-242, 1972.
- Faig-Leite F.S. & Defaveri J. Traqueobroncopatia osteocondroplástica em portador de tumor de Klatskin: relato de caso e revisão de literatura. *Jornal Brasileiro de Patologia e Medicina Laboratorial*, 44:459-462, 2008.
- Hussain K. & Gilbert S. Tracheopathia osteochondroplastica. *Clinical Medicine and Research*, 1:239-242, 2003.
- Joonki K., Kangmoon S. & Jeonghee H. Tracheopathia osteochondroplastica in German Shepherds. *Korean Journal of Veterinary Clinical Medicine*, 17:129-133, 2000.
- Lazor D.R. & Cordier J.F. [2004] Tracheopathia osteochondroplastica. Orphanet Encyclopedia. Disponível em: < <http://www.orphanet/data/patho/GB/uk-TO.pdf> >. Acesso em: 30 Jul 2013.
- Leske V., Lazor R., Coetmeur D., Crestani B. & Chatté G. Tracheobronchopathia osteochondroplastica: a study of 41 patients. *Medicine*, 80:378-390, 2001.
- López A. Patologias dos sistemas e órgãos: sistema respiratório, p.463-558. In: McGavin M.D. & Zachary J.F. (Eds), *Bases da Patologia em Veterinária*. 4ª ed. Elsevier, Rio de Janeiro. 2007.
- Luschka H., Moersch H.J., Broders A.C. & Havens F.Z. Tracheopathia osteoplastica (osteoma of trachea). *Acta Otolaryngológica*, 26:291-293, 1937.
- Mboti F.B., Ninane V., Larsimont D., Leurquin M., Lemort M., Chassaing C. & Andry G. Acute respiratory failure from tracheopathia osteoplastica. *Acta Chirurgia Belgica*, 105:227-228, 2005.
- Park S.S., Shin D.H., Lee D.H., Jeon S.C., Lee J.H. & Lee J.D. Tracheopathia osteoplastica simulating asthmatic symptoms. Diagnosis by bronchoscopy and computerized tomography. *Respiration*, 62:43-45, 1995.
- Pinto J.A., Silva L.C., Perfeito D.J.P. & Soares J.S. Osteochondroplastic tracheobronchopathy - report on 02 cases and bibliographic review. *Brazilian Journal of Otorhinolaryngology*, 76:789-793, 2010.
- Polk J.W. & Cubiles J.A. Chronic tracheopathia osteoplastica. *Chest*, 34:562-565, 1958.
- Prakash U.B., McCullough A.E., Edell E.S. & Nienhuis D.M. Tracheopathia osteoplastica: familial occurrence. *Mayo Clinic Proceedings*, 64:1091-1096, 1989.
- Rokitansky K. & Dalgaard J.B. Tracheopathia chondrosteoplastica. A case elucidating the problems concerning development and ossification of elastic cartilage. *Acta Pathologica Microbiologica Scandinavica*, 24:118-134, 1947.
- Sellon R.K., Johnson J.L., Leathers C.W., Sporn T. & Beckley J.C. Tracheobronchopathia osteochondroplastica in a dog. *Journal of Veterinary Internal Medicine*, 18:359-362, 2004.
- Simsek P.O., Ozcelik U., Demirkazik F., Unal O.F., Orhan D., Aslan A.T. & Dogru D. Tracheobronchopathia Osteochondroplastica in a 9-Year-Old Girl. *Pediatric Pulmonology*, 41:95-97, 2006.
- Spanton J.A., Henderson I.S.F., Krudewig C. & Mair T.S. Tracheal rupture in a native pony mare associated with a condition resembling tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Equine Veterinary Education*, 20:582-586, 2008.
- Swamy T.L.N. & Hasan A. Tracheopathia osteoplastica presenting with haemoptysis in a young male. *Indian Journal of Chest Diseases & Allied Science*, 53:117-119, 2010.
- Tajima K., Yamakawa M., Katagiri T. & Sasaki H. Immunohistochemical detection of bone morphogenetic protein-2 and transforming growth factor beta-1 in tracheopathia osteochondroplastica. *Virchows Archive Journal*, 431:359-363, 1997.
- Thomas D., Stonell C. & Hasan K. Tracheobronchopathia osteoplastica: incidental finding at tracheal intubation. *British Journal of Anaesthesia*, 87:515-517, 2001.
- Virchow R. *Die Krankhaften Geschwulste*, 1:443, 1863.
- Wilks S. Ossific deposits on the larynx, trachea and bronchi. *Transactions of the Pathological Society of London*, 8:88, 1857.
- Zamani A., Zamani A.G., Bikmaz E. & Imecik O. Tracheopathia Osteoplastica. *Turkish Journal of Medical Sciences*, 28:573-575, 1998.