

KONJENİTAL KİSTİK ADENOMATOİD MALFORMASYON

Dr. M. Erkan BALKAN (*) • Dr. İrfan TAŞTEPE (*) • Dr. Işın PAK (**) • Dr. Nilgün KAPUCUOĞLU (**) • Dr. Mehmet ÜNLÜ (*) • Prof. Dr. Dinçer ÖĞÜN (**)

ÖZET: Konjenital kistik adenomatoid malformasyon, terminal bronşiyol benzeri yapıların proliferasyonu ve kist oluşumuyla karakterize, akciğerin gerçek hamartomatöz, nadir bir lezyonudur. Akciğerin konjenital kistik hastalığı ilk defa Bartholinus tarafından 1687'de bildirilmiştir. Fakat, ilk olarak 1949'da Ch'in ve Tang tarafından spesifik bir antite olarak tanımlanmıştır. Lezyon genellikle erken yenidoğan döneminde ciddi solunum sıkıntısına neden olmaktadır. Yaşamın ilk yılından sonra görülmesi oldukça nadirdir ve çok az sayıda erişkin olgu bildirilmiştir. Bronkografi ile "kistik bronşektazi - harabolmuş akciğer" tanısı ile ameliyata alınan bir olgumuzu sunuyoruz.

ANAHTAR KELİMELE: Konjenital kistik adenomatoid malformasyon, kistik bronşektazi

SUMMARY: Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung is an actual hamartomatous rare lesion which characterized by proliferation of terminal bronchiol-like structures and cyst formation. Congenital cystic disease of the lung was first reported by Bartholinus in 1687, but it has first described a spesefic entity by Ch'in and Tang in 1949. Etiology of this malformation is not known. The lesion usually causes severe respiratory distress early in the neonatal period. The presentation of congenital cystic adenomatoid malformation after the first year of life is extremely rare and a few adulthood cases are reported. We present one case that is under-go operation preoperatively recognise" cystic bronchiectasis-destroyed lung" by bronchographical evaluation.

KEY WORDS: Congenital cystic adenomatoid malformation, cystic bronchiectasis

GİRİŞ

Akciğerin gerçek hamartomatöz bir lezyonu olan Konjenital Kistik Adenomatoid Malformasyon (KKAM), birbirleriyle ilişkili terminal bronş benzeri yapıların proliferasyonu ve çeşitli boyutta kistik yapıların oluşumuyla karakterize bir gelişim anomalisidir (1). Akciğerin kistik lezyonlarından kistik malformasyonlar grubu içinde yer alır. Başlıca yenidoğan döneminde görülür. Yaşamın ilk yıllarından sonra görülmesi oldukça nadirdir ve çok az sayıda erişkin olgusu bildirilmiştir (1,2).

Akciğerin kistik hastalığı, ilk olarak 1687'de Bartholinus tarafından bildirilmiştir. Fakat, konjenital orijinli kistler içerisinde değerlendirilmesi yakın geçmişte olmuştur. Koontz, 1925'de ilk olarak literatürde konuya geniş olarak yer vermiştir (3). Stowens, 1959'da birbirinden her zaman kolaylıkla ayrılmayan 5 tip konjenital kistik hastalık tanımlamıştır:

- 1- Alveoler diferansiyasyon eksikliği ve akciğerin bronşiyal komponentinin kompensatris olarak aşırı büyümesi ile birlikte olan mikroskopik kistler,
- 2- Konjenital kistik bronşektazi,
- 3- Alveollerin kistik genişlemesi,
- 4- İçlerinde zaman zaman bulunabilen kistlerle akciğer parankimine baskı yapan, parankimin adenomatoid veya hamartomatöz kitleleri,
- 5- Kistik pulmoner lenfanjiektazi.

American Collage of Chest Physicians'ın 1966'da yaptığına göre, akciğerin kistik lezyonları şu şekilde gruplandırılır (4) (Tablo 1):

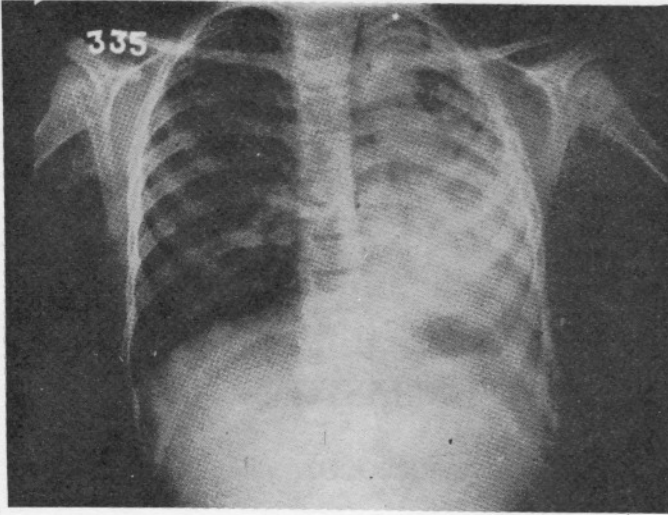
Tabloda yer alan akciğerin konjenital kistik adenomatoid malformasyonu ilk olarak 1897'de Stoerk tarafından tanımlanmıştır (5). Çocuklarda akciğer cerrahisinin tarihsel gelişimi göstermektedir ki, 1933 yılında Reinhoff 3 yaşında bir erkek çocukta sağ üst lobdan unilokuler bir konjenital kisti, 1943'de Fischer 1 aylık bir infanttın sağ üst ve orta lobu kistik hastalık nedeniyle rezeke etmiştir. 1946'da Gross 3 haftalık bir infanttın kistik hastalık nedeniyle sol pnömonektomi uygulamıştır. 1950'de Potts 5 günlük bir infanttın multilokuler kistik hastalık nedeniyle lobektomi yaptığını bildirmiştir. 1954'de Swan 31 günlük bir bebeğe büyüyen kist nedeniyle orta lobektomi, Mimis 23 saatlik bir bebeğe kistik hastalık nedeniyle sol alt lobektomi yapmışlardır (3,4). Cerrahisinin çok eskilere dayanmasına karşın, tablonun bir kli-

Tablo : Akciğerin Kistik Lezyonları

- | |
|--|
| A- Kistik malformasyon |
| 1- Tek kist |
| 2- Çok sayıda kistler |
| 3- Kistik sekestrasyon |
| 4- Kistik adenomatoid malformasyon |
| 5- Diffüz kistik lenfanjiektazi |
| B-Konjenital pulmoner kist |
| 1- Tek kist |
| a- Asemptomatik |
| b- Parankime baskı oluşturan ve lob bronşları ile bağlantılı |
| 2- Çok sayıda kistler |
| 3- Kistik bronşektazi |

* Atatürk Göğüs Hastalıkları ve Göğüs Cerrahisi Merkezi Göğüs Cerrahisi Kliniği Keçiören/Ankara

** Onkoloji Hastanesi Patoloji Departmanı Demetevler/Ankara



Resim 1: Posteroanterior akciğer grafisinde sol hemitoraksta üst alanda yer yer açıklık gösteren, nonhomojen gölge koyuluğu, trakea ve mediastende sola yer değiştirme.

nik antite olarak literatürde tanımlanması Ch'in ve Tang tarafından 1949'da yapılmıştır (3).

OLGU SUNUSU

İ. Ç., 6 yaşında erkek çocuk olup, küçüklüğünden beri aralıklı prodüktif öksürük, bir aydır ateşlenme yakınması varmış. Yakınmaları özellikle üşüttüğü dönemlerde artırmış. Kısa süreli tedaviler görmüş. Daha önce geçirilmiş başka bir hastalık tanımlanmıyor. Olgumuzun hastaneye yatışından 1 ay önce yüksek ateşle seyreden bir hastalık nedeniyle bir kız kardeşi eksitus olmuş. Bunun üzerine kontrol amacıyla gittikleri bir başka hastanede çekilen radyografilerde, yabancı cisim aspirasyonu-atelektazi düşünülerek acilen hastanemize gönderilmiş. Yapılan retrospektif araştırmada olgumuz ve kardeşi arasında bağlantı kurulamadı.

Fizik muayenede, hafif solunum sıkıntısı dışında genel durumu oldukça iyi idi. İncelemede pectus carinatum'u vardı. Palpasyonda bilateral ekspansiyon kısıtlı, perküsyonda solda matite alınıyordu. Oskültasyonda solda üst alanda bronşiyal solunum sesi alınıyor, orta ve alt alanda solunum sesleri azalmıştı. Sağ akciğerin muayene bulguları normaldi. Kalp tepe atımı, orta klavikuler çizgide, 5. interkostal aralıkta S₁S₂ olarak duyuluyordu.

Posteroanterior akciğer grafisinde, sol hemitoraksta üst alanda yer yer açıklık gösteren nonhomojen gölge koyuluğu, trakea ve mediastende sola yer değiştirme görülüyor (Resim-1). Sol yan toraks grafisinde, sternumun pectus carinatum ile uyumlu deformitesi, retrosternal alanda genişleme izleniyor (Resim-2).

Hastaya, "yabancı cisim aspirasyonu-atelektazi" ön tanısıyla genel anestezi altında rijit bronkoskopi yapıldı. Sol sistemde endobronşiyal patolojiye rastlanmadı. Sol sistemden pürülan materyal geliyordu. Bronş mukozası hiperemik, ödemli, lob ve segment ağızları konsantrik daralma gösteriyordu. Bronş lavajı yapıldı. Kültürde hemolitik E. Coli ve Proteus üredi.

Bronkografilerde, sol akciğerin kistik değişiklikler göz-



Resim 2: Sol yan toraks grafisinde, sternumun pectus carinatum ile uyumlu deformitesi, retrosternal alanda genişleme.

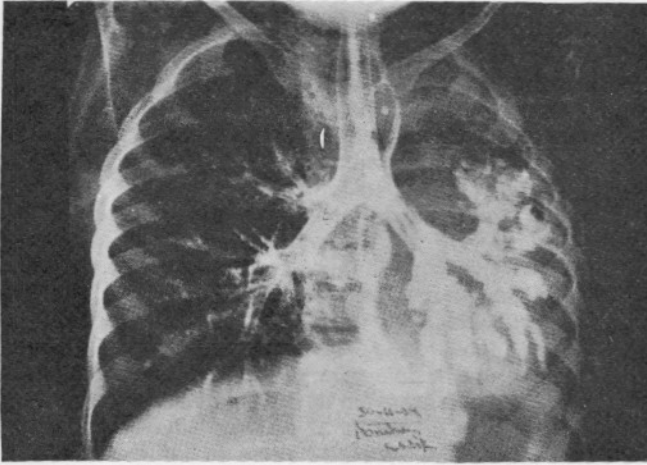
teren bronş yapısı ve harab olmuş akciğer görünümü gözleniyor. Sağ bronkogram normal olarak değerlendirildi (Resim-3-4).

Rutin laboratuvar incelemelerinde sonuçlar normal sınırlardaydı. Nonspesifik tedavi ile hazırlanan hasta, "sol harab olmuş akciğer" ötanısıyla ameliyata alındı. Standart posterolateral torakotomi ile 5. interkostal aralıktan toraksa girildi. Gözlemede, sol akciğer toraks duvarına, diyafragma ve mediastene ince bridlerle yapışık, parankim soluk pembe renkliydi. Palpasyonda akciğer parankimi lastik kıvamında, yer yer ince duvarlı kistik yapıdaydı. Klasik pnömonektomi uygulandı.

Cerrahi spesimen makroskopik incelemesinde, 13.5 X 10 X 4 cm. boyutundaki lobektomi materyalinin kesit yüzeyinde yer yer en büyüğü 1 cm. en küçüğü 0.4 cm. çapında kistik yapılar görüldü.

Mikroskopik incelemede ise az sayıda psödostratifiye silendirik silyalı epitelle çevrili, geniş alanlarda tek sıralı kübik epitelle çevrili kistik karakterli bronşiyol benzeri yapılar görüldü. Bu yapıların çevresinde bazı alanlarda olgun kıkırdak alanları ve glandüler yapılar çevresinde yer yer follikül oluşturan lenfositler infiltrasyon izlendi. Bir alanda ise tamamen müsinöz sekreyon yapan glandlardan oluşmuş bir ada bulunuyordu. Bu yapılar, çevrelerindeki düzenli yapıda alveollere geçiş göstermektedir. Alveollerin lümenleri ise eritrosit doludur (Resim-5-6).

Bu histopatolojik bulgularla olgu, "Konjenital Kistik Adenomatoid Malformasyon - Kartilajinöz varyant" olarak de-



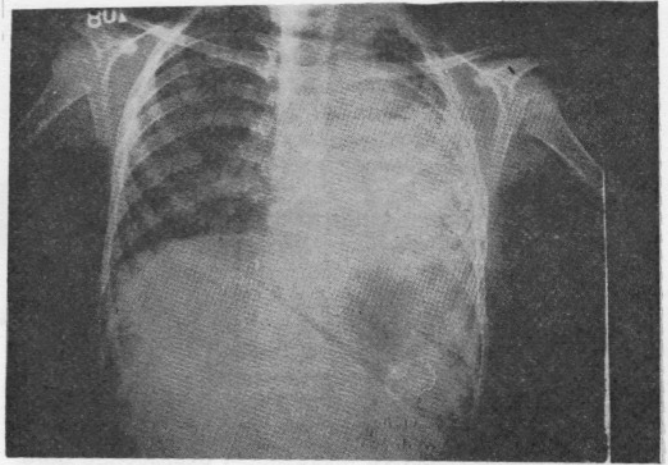
Resim 3: Bronkografide, sol sistemde kistik değişiklikler gösteren bronş yapısı ve bronşektaziye bağlı harabolmuş akciğer görünümü.

ğerlendirilmiştir.

TARTIŞMA

Akciğerin kistik hastalığı, ilk olarak 1687'de Bartholinus tarafından bildirilmiştir. Akciğerin konjenital kistik adenomatoid malformasyon ilk olarak 1897'de Stoerk tarafından tanımlanmıştır. Stoerk, olgusunu "kistik fetal bronşiyal adenom" adıyla bildirilmiştir (3,5). Bugüne kadar yaklaşık 100 olgu bildirilmiştir (5-7). Olgular, Ch'in ve Tang (1949), Bel-ganger, la Flèche ve Picard (1964) ve Dempster (1969) tarafından derlenmiştir (3).

Konjenital kistik adenomatoid malformasyon, bronşiyol benzeri yapıların proliferasyonu ve kist oluşumuyla karakterize, hamartom özelliği taşıyan, akciğer embriyogenezinin bozukluğu sonucu ortaya çıkan nadir bir lezyondur. Oster ve Fortune (1978) (8) ile Miller ve ark. (1980) (9)'na göre embriyogenezin 5. ve 6. haftaları arasında terminal solunum elementlerinin anormal çoğalması sonucu görülür. Embriyolojik yaşamın 2. ayının ilk günlerinde ön barsağın gelişimi, pulmoner divertikülün oluşumuna yolaçar. Divertikül hızla

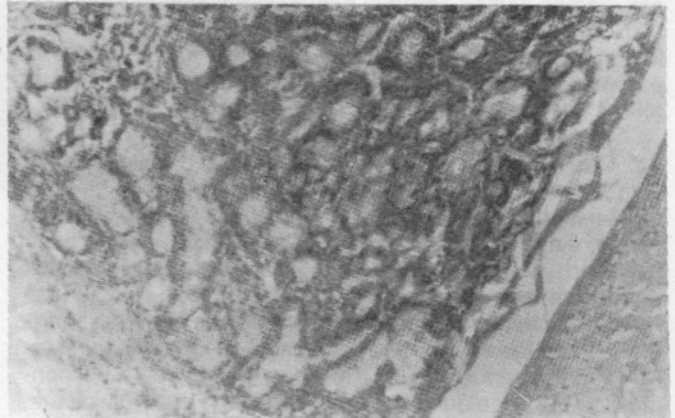
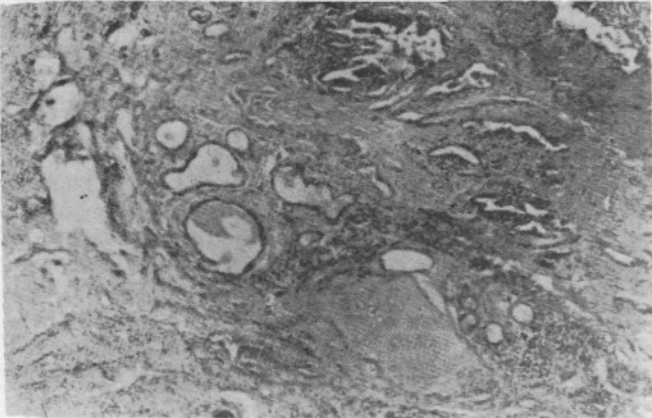


Resim 4: Sol pnömonektomi sonrası kontrol filmi.

aşağı doğru büyüyüp ikiye ayrılır ve 5. haftada lobar mimari seçilebilir hale gelir. Altıncı haftada ie kıkırdak yapı tanınabilir. Hızla büyüyen bu divertikül ventra ve dorsal aorta arasındaki zengin damarağına doğru çıkıntı yapar (6). Bronşların kıkırdak ve seromüsinöz bezler gibi tipik komponentlerinin yokluğu embriyogenezin 10. haftasından önce ortaya çıkan gelişim bozukluğunun sonucu olarak görülmektedir (Waddell, 1949) (5). Kısaca, patolojinin primer akciğer tomurcuğu (3-4. haftalar) ve kıkırdak gelişiminin başlangıcı (10. hafta) evreleri arasında ortaya çıktığı düşünülmektedir. Ancak, kartilojinöz varyantta olayın daha geç bir dönemde olduğu ileri sürülmektedir (1,2,7,10,11).

Sonuç olarak terminal solunum elemanlarında anormal bir proliferasyon görülür (1,2). Etyopatogeneze sorumlu spesifik bir faktör belirlenmemiş, cins ve ırk ayrımı gösterilmemiştir (2,4). KKAM, tüm loblarda tanımlanmıştır, özellikle tercih ettiği bir lokalizasyon yoktur (2). Fakat, genellikle tek taraflıdır ve tek bobla sınırlıdır. Miller ve ark. (9)'na göre, üst ve alt loblar eşit olarak tutulur. orta lob tutulumu nadirdir. Multilobar tutulum da unilateral olarak kalır (6). Literatürde bildirilen olgulardan yalnız biri bilateraldir ve bu olgu da Ch'in ve Tang'ın orijinal serisine aittir (3).

KKAM'nu tanımlamada kullanılan histolojik kriterler



Resim 5-6: Olgunun mikroskopik bulguları: Kistik glandüler alanlar ve komşuluklarındaki kartilajinöz alanlar, arada lenfositler infiltrasyon, müköz bez toplulukları (H & E, X 100).

Kwitken ve Reiner (8) tarafından şu şekilde özetlenmiştir:

1- Birbiryle ilişkili psödostratifye silyalı silindirik veya tek sıralı kübik epitelle çevrili irili ufaklı kistler şeklinde görülen terminal solunum yapılarında "adenomatoid" artışı,

2- Mukozanın polipoid yapılar oluşturmaması ve bronşiyal tipte epitelle çevrili kistik yapıların duvarlarında elastik doku artışı,

3- Hastalıklı akciğer içinde kalmış normal bronşiyol dışındaki kistik parankimde kıkırdak parçalarının olmaması,

4- Yer yer mukojenik hücrelerle çevrili alveol grupları,

5- İnflamasyon olmayışı (1,3,5,7,10,11).

Ancak, son zamanlarda küçük kıkırdak adaları içeren ve mukojenik odakları olmayan olgular da yayınlanmıştır (7,10). Aynı zamanda, inflamasyonun olmayışı yeni doğanlarda tanı için önemli bir kriterken, daha yaşlı grubun hemen hepsinde inflamasyon görülmektedir (1,2,10).

Klinik, makroskopik ve mikroskopik özelliklerine göre Stocker ve ark. (11) lezyonu üç grupta sınıflandırmıştır.

Tip I lezyonlar: tek veya çok sayıda büyük (çapı 2 cm.'den büyük) kistlerden oluşmuşlardır. Sıklıkla mediastinal herniasyona neden olurlar. Kistler silyalı psödostratifye silindirik epitel ile çevrilidir. Kist duvarları bol miktarda düz kas ve elastik doku içerir. Olguların 1/3'ünde mukus salgılayan hücreler ve nadiren duvarlarda kıkırdak görülür. Kistler arasında normal alveol görülebilir. En sık rastlanan ve yalnız erişkinlerde bildirilen tiptir (Avitabile ve ark. (1)). Prognoz iyidir. Preoperatif radyografik inceleme sırasında tipik multikistik yapı varsa tanı konabilir. Kistik yapılar ve normal bronşlar arasında bağlantı genellikle görülür.

Tip II lezyonlar: silyalı kübik epitelten silindirik epitele kadar değişen, nadiren de silyalı psödostratifye epitelle çevrili çok sayıda küçük kistten oluşur. Bu tip kistler yanında, solunum bronşiyolu ve genişlemiş alveollere benzer silindirik epitelle çevrili yapılar da bulunur. Müköz hücreler ve kıkırdak yoktur. Sıklıkla genitoüriner ve gastrointestinal sistemleri etkileyen diğer konjenital anomaliler de görülür (Stocker ve ark. (11)). Prognozu kötüdür.

Tip III lezyonlar: mediastinal yer değiştirmeye neden olan büyük, kistik olmayan lezyonlardır. Bronşiyol benzeri yapılar silyalı kübik epitelle çevrilidir ve arada silyasız kübik epitelle çevrili alveol boyutunda yapılar görülür. Prognozu kötüdür.

Ayrıca ve Dijk ve Wagenvoort (5) da KKAM'nu yukardaki sınıflandırmaya karşılık gelecek şekilde kistik, ara (intermediate) ve solid olarak üç alt gruba ayırmışlardır.

KKAM'un damarlanması pekçok olguda normaldir. Ancak, zaman zaman anormal damarsal bağlantılar görüldüğü bildirilmektedir. Pulmoner arterin dalları tarafından damarlandığı gösterilmiştir (5). Fakat bu olgular histolojik olarak pulmoner sekestrasyondan ayrılmamaktadır (Avitabile ve ark., 1984 (1)).

Tek ve en önemli tanı aracı, akciğer röntgenogramlarıdır. Craig ve ark. 1956'da bu malformasyonun radyolojik bulgularını tanımlamışlardır. Röntgenogramlar karakteristiktir. Çeşitli büyüklük ve şekillerde su dansitesinde, ışık geçirgen, sınırları genellikle oldukça şekillerde su dansitesinde, ışık geçirgen, sınırları genellikle oldukça keskin kistik alanlar içeren intrapulmoner kitle görülür (3,4). Göğüs asimetrisi daime görülebilir. Kalp ve mediasten yer değiştirmiş ve hasta lob diğer kistik lezyonlarda olduğu gibi karşı tarafa herniye olmuştur (4). KKAM'un erişkin yaşta belirlenmesi güçtür. İlk olgular (Avitabile ve ark. (1) ile Hulnick ark. (12) tarafından 1984'de bildirilmiştir. Yetişkin tip KKAM'un radyolojik bulguları akciğerin alt loblarında yerleşmiş tek veya çok sayıda ince duvarlı kistler şeklindedir. Kistlerin için-

de hava-sıvı seviyesi olabileceği gibi, içi tamamen sıvıyla dolu kistler intrapulmoner kitleleri taklid edebilir (12).

KKAM'un kliniğine özellikle infantlarda, maternal hidramnionoz ve erken doğum, fetal anazarka sıklıkla eşlik eder (4,5). Anazarkanın (% 42), mediastinal yer değiştirmeye bağlı, vena cava ve sağ auricula'nın baskı altında kalması sonucu olduğu düşünülmektedir (3,4).

Pekçok olguda hayatın ilk haftası içinde ciddi solunum sıkıntısı olmaktadır. Taşikardi ve siyanoz da olaya katılır. Semptomların, kitle tarafından baskı altında kalan normal akciğer dokusu ve mediastenin yer değiştirmesine bağlı olduğu düşünülmektedir (2-6). Erken dönemde solunum sıkıntısı geçiren infantlarda akciğer dokusu amfizematöz karakterdedir. İçleri hava dolu olan kistler birbirleri ile bağlantılı olabilirler, fakat lob bronşları ile olan bağlantıları her zaman gösterilemeyebilir (2). Daha az sıklıkla, lezyon tekrarlayan solunum yolları infeksiyonları nedeni ile ileri çocukluk dönemlerinde ve hatta erişkinlerde de görülebilir (1).

KKAM'a çeşitli sistemleri ait anomaliler de eşlik eder: Maternal hidramnionoz, anazarka, prematürite, Potter Sendromu, jejunal atrezi (4); hidrosefali, renal agenezi (13); hipoplastik, displastik olmayan böbrek, gastrik duplikasyon kisti, multiseptali dalak, ventriküler septal defekt, pulmoner sekestrasyon, konjenital diyafragma defekti, yumuşak damağın bilateral yarığı olarak görülen Pierre Robin anomalisi, glossoptozis, makroglossi, küçük mandibula, bifid uterus, serviks ve vajina, hipertelorizm (14).

Bu klinik prezantasyonlarla KKAM, 3 farklı şekilde görülür:

1- Yenidoğanda veya perinatal ölümle seyreden, bunların çoğunda anazarka, prematürite, maternal hidramnionoz eşlik ettiği tip,

2- Yenidoğanda akut gelişen, progresif seyreden solunum sıkıntısının olduğu tip,

3- Daha büyük infantlarda veya çocuklarda akut veya kronik seyreden pulmoner infeksiyonların görüldüğü tip

Genellikle KKAM, yetişkinlerin kistik lezyonları arasında yer almaz (2). Yine de, klinik veya patolojik yönden ayırıcı tanıda, postpnömonik pnömosel, kistik bronşektazi, konjenital lobar amfizem, intrapulmoner bronkojenik kist ve intralobar sekestrasyon düşünülmelidir.

Pnömoselde, KKAM'da görülen kompleks epitelyal ve stromal elemanlar yoktur. Bronşektazi, kist duvarında kıkırdak plakları ve bronşiyal bezlerin olmayışı ile ayrılır. Konjenital lobar amfizemde alveollere rastlanmaz. Operasyon sırasında tutulan loba, sistemik dolaşımdan gelen anormal bir arter görülmezse, pulmoner sekresyon ekarte edilir. İntrapulmoner bronkojenik kist, hiler yerleşimi, tek oluşu, duvarında münöz bezler ve kıkırdak içermesi, ancak alveollere direkt bağlantısının olmayışıyla ayrılır (1,14).

KKAM'un "kartilajinöz varyantı" ise pulmoner hamartom ile karıştırılmamalıdır. Genellikle 6. dekatta görülür. Pediatik yaş grubunda son derece nadirdir (7).

KKAM'un kliniği ve tedavisi belirlendiği yaşa bağlıdır. Yenidoğan döneminde solunum sıkıntısı ile kendini gösterir ve acil cerrahi girişim gerekir. Yenidoğan döneminden sonra tesbit edilen olguların ise kronik bir gidiş vardır ve asemptomatik olabilirler. Sıklıkla tekrarlayan solunum yolları infeksiyonları görülür.

Bazı yazarlar lezyondaki kist boyutunun yaşla ilgisi olduğunu söylerken (15), bazıları ise böyle bir ilişkinin olmadığını ileri sürmektedirler (14).

Lobun tutulma oranı da oldukça değişkendir. Bazı serilerde daha küçük çocuklarda daha büyük tutulum oranı olduğu belirlenmiştir. Bu da küçük lezyonların uzun bir süreç-

ten sonra komplikasyonlarla kendini gösterdiğini düşündür (15).

Olgumuz, klinik ve histomorfolojik bulgularıyla KKAM Tip II - kartilajinöz varyant ile uyumludur. Olgumuz yeniden hatırlatmaktadır ki, KKAM, ileri çocukluk dönemlerinde de görülebilir ve yalnız yenidoğan dönemine özgü değildir ve ince duvarlı, orijini bilinmeyen kistlerde akla gelmelidir (2).

KAYNAKLAR

1. Avitabile, AM, Greco MA, Hulnick DH, et al, 1984. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung in adults. *Amer J Surg pathol*, 8, 193-202.
2. Pulperio JR, Lopez I, Sotelo T, et al, 1987. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung in a young adult. *Br J Radiology*, 60, 1128-1130.
3. Holder TM, Christy MG, 1964. Cystic adenomatoid malformation of the lung. *J Thoracic. and Cardiovasc. Surg.*, 47, 5, 590-597.
4. Merenstein MAJ GB, 1969. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Amer J Dis Child*, 118, 772-776.
5. van Dijk C, Wagenvoort CA, 1973. The various types of congenital adenomatoid malformation of the lung. *J Pathol*, 110, 131-134.
6. Halloran LG, Silverberg SG, Salzberg AM, 1972. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Arch Surg*, 104, 715-719.
7. Benning TL, et al, 1987. Cartilaginous variant of congenital adenomatoid malformation of the lung. *Chest*, 82, 514-523.
8. Ostor A, Fortune DW, 1978. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Amer J Clin, Pathol*, 70, 595-604.
9. Miller RK, Sieber WK, Yunis EJ, 1980. Congenital adenomatoid malformation of the lung. A report of 17 cases and review of the literature. In *Pathology Annual (Part 1)* Ed. by SC. Sommers and PP Rosen (Appleton Century Croft, New York), pp. 387-407.
10. Kwitken J, Reiner L, 1962. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Pediatrics*, 30, 759-768.
11. Strocker JT, Madewell JE, Drake RM, 1977. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung: classification and morphologic spectrum. *Human Pathology*, 8, 155-171.
12. Hulnick DH, Naidich DP, McCauley DI, et al, 1984. Late presentation of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Radiology*, 151, 569-573.
13. Taber P, Schwartz DW, 1972. Cystic lung lesion in a newborn: congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *J Pediatr Surg*, 7, 366.
14. Bale PM, 1979. Congenital cystic malformation of the lung: A form of congenital bronchiolar (adenomatoid) malformation. *Amer J Clin Pathol*, 71, 422.
15. Moncrieff MW, Cameron AH, Astley R, et al. 1969. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Thorax*, 24, 476-487.