

CADERNOS DE ANATOMIA PATOLÓGICA/PATHOLOGY'S NOTEBOOKS

EDITORIA CONVIDADA/GUEST EDITOR: LINA CARVALHO

## **Malformação adenomatóide quística congénita do pulmão ou malformação congénita das vias aéreas pulmonares**

## **Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung or congenital pulmonary airway malformation**

VÍTOR SOUSA\*, LINA CARVALHO\*\*

Hospitais da Universidade de Coimbra. Serviço de Anatomia Patológica.  
Directora: Dra. Maria Irene Martins

### **RESUMO**

A malformação adenomatóide quística congénita do pulmão corresponde a uma lesão hamartomatosa, facilmente reconhecível pela sua morfologia que permite identificar as três formas clássicas de Stocker et al (1977): tipos 1, 2 e 3 e actualmente com possibilidade de se interpretar

### **ABSTRACT**

The cystic adenomatoid malformation of the lung is an hamartomatous lesion, easily identifiable by its morphology through the application of Stocker's et al (1977) classification (type 1, 2 and 3) and also following the criteria of Yousem, to understand the five types depend-

\* Interno do 4.º ano do Internato Complementar de Anatomia Patológica.

\*\* Assistente graduada e professora auxiliar de Anatomia Patológica.

**Recebido para publicação/Received for publication: 03.02.12**

como uma malformação espectral, de acordo com Yousem (2002), compreendendo cinco tipos, dependentes do nível a que ocorre a malformação na árvore tráqueo-broncopulmonar e, assim, aplicar a designação abrangente de malformação congénita das vias aéreas pulmonares.

Em 6 casos do arquivo do Serviço de Anatomia Patológica dos HUC, identificaram-se as três formas morfológicas de Stocker, as quais foram estudadas com aplicação do pentacrômico de Movat, CK 7 e anticorpo anti-TTF 1.

Nos três tipos morfológicos há ausência da rede elástica alveolar habitual. A CK 7 identifica a distribuição epitelial, permitindo avaliar a extensão da lesão inflamatória. O anticorpo anti-TTF 1, aparentemente ausente no tipo 3, é facilmente identificado nos tipos 1 e 2, em relação com alterações inflamatórias. A ausência de células identificadas pelo anticorpo anti-TTF1 permitirá chegar até ao tipo 3, esperando-se que no tipo 4 de Yousem estejam presentes.

**REV PORT PNEUMOL 2003 IX (3): 249-256**

**Palavras-chave:** pulmão; malformação adenomatóide; malformação das vias aéreas.

ent on the level of malformation in the airway and lung.

The three morphological types described by Stocker were identified in 6 cases of the archive of the Department of Pathology of Coimbra's University Hospital, studied morphologically by the use of Movat's pentachromic stain and the application of the antibody anti-CK7 and antibody anti-TTF1.

In the three morphological types the elastic alveolar net is absent. The CK7 identifies the epithelial distribution and is useful to evaluate the extension of the inflammatory lesion. The antibody anti-TTF1, apparently absent in type 3 cases, is easily identified in type 1 and 2 cases and overexpressed in inflammatory areas. It seems that the absence of cells identified by the antibody anti-TTF1 prevents overdiagnosing of type 4 in Yousem's classification of congenital pulmonary airway malformation (CPAM).

**REV PORT PNEUMOL 2003 IX (3): 249-256**

**Key-words:** lung; adenomatoid malformation; pulmonary airway malformation.

## INTRODUÇÃO

A malformação adenomatóide quística congénita do pulmão é uma lesão hamartomatosa rara, caracterizada pela paragem da maturação normal bronquiolar, resultando em sobrecrecimento de estruturas brônquicas, bronquíolos terminais, sacos alveolares e alvéolos anormais, de tamanho e/ou distribuição variáveis<sup>1, 2</sup>.

A etiopatogenia é desconhecida<sup>3, 4</sup>. Têm sido descritos cromossomas 18 recombinantes<sup>5</sup>. É causada por paragem no desenvolvimento pulmonar<sup>4</sup>. Alguns autores defendem que resulta de um aumento de proliferação e perturbação da apoptose,

demonstrados por elevada expressão de Ki67 e diminuição de corpos apoptóticos<sup>3</sup>. Outros referem um aumento de expressão do gene PDGF- $\beta$  e da proteína PDGF- $\beta\beta$  nas MAQ de crescimento rápido<sup>6</sup>. Têm sido descritas associações com outras malformações congénitas do pulmão, nomeadamente com sequestros pulmonares e quistos broncogénicos, sugerindo origem embriológica comum<sup>7, 8, 9</sup>.

Embora rara é a mais frequente das malformações quísticas<sup>10</sup>, com menor prevalência após o 1.º ano de vida e rara nos adultos<sup>11</sup>. Não existe predomínio racial<sup>1</sup>. Há ligeira preferência pelo sexo masculino<sup>12</sup>. Não existe definição de locali-

zação específica mas tende a envolver apenas um lobo pulmonar<sup>1</sup>.

Antes do 1.º ano de vida, a apresentação clínica é geralmente como SDR e, quando diagnosticadas após o 1.º ano, seguem-se infecções de repetição<sup>13</sup>.

Podem ainda manifestar-se por hemoptise, pneumotórax, piopneumotórax, hemopneumotórax, hipertensão pulmonar, desvios do mediastino, compressão cardíaca e alterações hemodinâmicas<sup>14-19</sup>.

A gravidade dos sintomas depende do tamanho das lesões e do tamanho dos quistos<sup>12</sup>.

O diagnóstico pré-natal tornou-se mais frequente com a ecografia e a TAC é útil na avaliação da regressão<sup>16,20-26</sup>. Têm sido descritos casos de regressão e de diminuição de dimensões das áreas quísticas<sup>1, 16, 26, 27</sup>.

As principais complicações são o desenvolvimento de tumores malignos, nomeadamente de carcinoma bronquioloalveolar, rabdomiossarcoma e blastoma pulmonar<sup>10, 28-35</sup>.

Os factores de pior prognóstico são a hidrópisia fetal e as lesões microquísticas, geralmente incompatíveis com a vida devido à ausência de superfície de troca gasosa alveolar<sup>36, 37</sup>.

As classificações morfológicas de Stocker e Yousem têm valor prognóstico e podem ser morfológicamente bem caracterizadas<sup>38, 39</sup>.

## MATERIAL E MÉTODOS

Foram seleccionados 6 casos registados nos últimos 9 anos no Arquivo do Serviço de Anatomia Patológica dos HUC que foram estudados aplicando técnicas histoquímicas (HE, PAS, elastina e pentacrómico de Movat) e de imuno-histoquímica (CK7 e TTF1), para a respectiva caracterização morfológica.

## RESULTADOS

As idades variaram entre as 25 semanas de gestação e os 33 anos, sendo assim dois casos

pré-natais e os restantes diagnosticados na adolescência e idade adulta. Três casos foram diagnosticados em indivíduos do sexo feminino e três em indivíduos do sexo masculino.

A localização das lesões foi variável, com predomínio ligeiro para os lobos superiores. Um caso interessava os lobos superior e médio direitos.

Do ponto de vista histológico identificaram-se 3 casos de tipo 1, 2 de tipo 3 e 1 de tipo 2 (Quadros I e II). A técnica de MacMannus (PAS) permitiu pôr em evidência células produtoras de muco, no tipo 1.

O pentacrómico de Movat e a elastina demonstraram a ausência da rede elástica alveolar habitual na quase totalidade dos casos, excepto no caso de tipo 2, de forma focal. A CK7 foi útil na identificação da distribuição epitelial, sendo positiva em todos os casos.

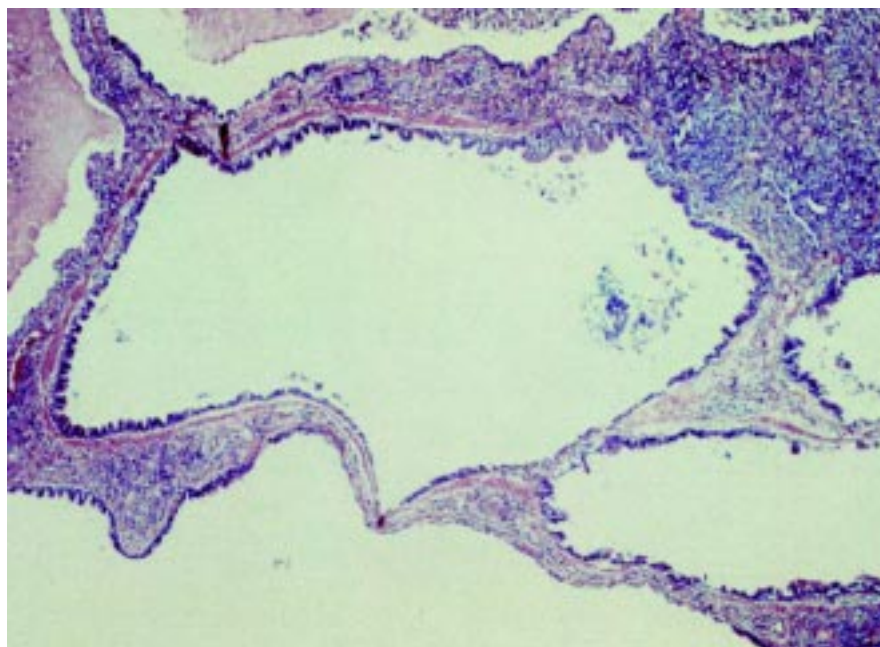
O anticorpo anti-TTF1 foi identificado nos tipos 1 e 2 e está aparentemente ausente no tipo 3, onde a sua expressão foi focal e ténue. A sua expressão é mais intensa no parênquima com alterações inflamatórias crónicas (Quadro III) (Figs. 1 e 2).

Não se identificaram outras lesões ou malformações associadas.

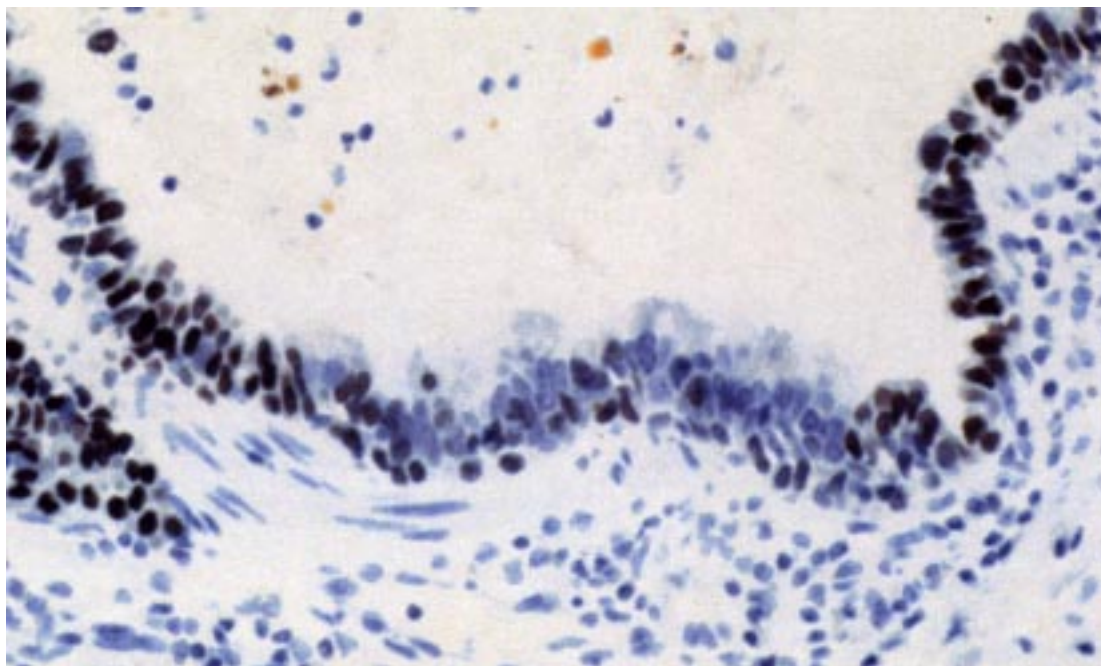
## DISCUSSÃO

A malformação adenomatóide quística congénita do pulmão apresenta-se sob o ponto de vista morfológico como um dos 3 tipos descritos, de acordo com as características dos quistos. O tipo 1 caracteriza-se pela presença de quistos grandes com 2 a 10 cm de diâmetro, o tipo 2 por quistos menores (< 1 cm) e o tipo 3 não apresenta quistos<sup>1</sup>. Também a ocupação quística do volume de cada lobo pulmonar é progressiva do tipo 1 ao tipo 3, neste último sob a forma de pequenas cavidades substituindo todo o parênquima pulmonar<sup>16,38</sup>.

Apresentamos casos diagnosticados após o 1.º ano de vida, o mesmo número em ambos os sexos



**Fig. 1** — Malformação congénita das vias aéreas pulmonares tipo 2 se Stocker/Yousem. Hematoxilina — Eosina X 100



**Fig. 1** — Malformação congénita das vias aéreas pulmonares tipo 2 se Stocker/Yousem. Marcação de células epiteliais com anticorpo anti-TTF1 X 200

**QUADRO I**

Malformação congénita das vias aéreas pulmonares

	Sexo	Idade	Local	Tipo
N156/91	F	27 sem	LIE	3
N254/98	M	25 sem	LSD	3
01422/94	F	18 A	LSD	1
14476/96	F	33 A	LM+SD	1
16425/99	M	16 A	LID	2
18038/01	M	51 A	LIE	1

Legenda: F=feminino; M=masculino; sem=semanas; A=anos;  
LIE=lobo inferior esquerdo; LSD=lobo superior direito;  
LM+SD=lobo médio e superior direitos; LID=lobo inferior direito.

e houve ligeiro predomínio de localização nos lobos superiores. Estes casos podem passar despercebidos devido à sequência de infecções que destroem a morfologia subjacente.

As características histológicas observadas estão de acordo com a literatura<sup>4, 12, 38, 39</sup>.

**QUADRO II**Malformação congénita das vias aéreas pulmonares.  
Características morfológicas

	Quistos	Epitélio	Cél muc	Cartil	Elast
N156/91	Neg	Cúbico	Neg	Neg	Neg
N254/98	Neg	Cúbico	Neg	Neg	Neg
01422/94	Gr	Pseud/C	Neg	Neg	Neg
14476/96	Gr	Pseud/C	Pos	Neg	Neg
16425/99	Pq	Cúbico	Neg	Neg	Neg
18038/01	Gr	Cúbico	Neg	Pos	Neg

Legenda: Neg=negativo; Gr=grandes; Pq=pequenos;  
Pseud=pseudoestratificado; C=cilíndrico; Pos=positivo.

A aplicação de PAS permitiu identificar a ausência de células produtoras de muco nos tipos 2 e 3, e a pesquisa de fibras elásticas foi, na quase totalidade dos casos, negativa. No entanto está descrita a sua presença no tipo 1.

Embora tenha sido fácil aplicar a classificação de Stocker aos casos estudados, a classificação de Yousem é de reter, não só para classificar casos mais raros, mas também para entender diagnósticos diferenciais e a relação com o carcinoma bronquíolo-alveolar<sup>40, 41</sup>.

Dado que uma das manifestações clínicas mais frequentes são as infecções, as malformações adenomatóides quísticas congénitas do pulmão podem acompanhar-se de inflamação. A CK7 põe em evidência o epitélio, permitindo a avaliação do dano parenquimatoso inflamatório, nomeadamente o alargamento das paredes quísticas.

A expressão de TTF1 foi ténue e focal no tipo 3. Assim, a CK7 demonstrou maior utilidade na identificação do componente epitelial, nomeadamente na extensão das lesões inflamatórias. Aparentemente os pneumócitos de tipo II, caracterizados pela expressão de TTF1, estão presentes nas malformações congénitas das vias aéreas, como no parênquima pulmonar normal, reforçando a classificação de Yousem, seguindo um espectro, do tipo 0 ao tipo 4, este último com células alveolares e pneumócitos tipo II (Quadro IV)<sup>39</sup>.

**CONCLUSÕES**

Como regras gerais para a caracterização morfológica das malformações adenomatóides quísticas congénitas do pulmão ou malformações congénitas das vias aéreas pulmonares, podemos sistematizar:

- A raridade do diagnóstico na idade adulta decorre das infecções de repetição que alteram a morfologia parenquimatosa.

**QUADRO III**

Malformação congénita das vias aéreas pulmonares. Histoquímica e imuno-histoquímica.

	<b>Tipo</b>	<b>PAS</b>	<b>Movat</b>	<b>Elastina</b>	<b>CK7</b>	<b>TTF1</b>
N156/91	3	Neg	Neg	Neg	Pos	Pos/Neg
N254/98	3	Neg	Neg	Neg	Pos	Pos/Neg
01422/94	1	Neg	Neg	Neg	Pos	Pos
14476/96	1	Pos	Neg	Neg	Pos	Pos/Neg
16425/99	2	Neg	Neg	Pos	Pos	Pos
18038/01	1	Neg	Neg	Neg	Pos	Pos

Legenda: Neg=negativo/ausente; Pos=positivo/presente.

**QUADRO IV**Malformação congénita das vias aéreas pulmonares.  
Classificação de Yousem

Tipo 0 – Traqueobrônquica  
 Tipo 1 – Brônquica/Bronquiolar  
 Tipo 2 – Bronquiolar  
 Tipo 3 – Bronquiolar/Ductos alveolares  
 Tipo 4 – Acinar distal

- O PAS permite identificar as células produtoras de muco, no revestimento epitelial dos quistos, no tipo 1 de Stocker.
- Nos 3 tipos morfológicos de Stocker há ausência de rede elástica e a sua presença esporádica não invalida o diagnóstico. Não está esclarecido se a rede elástica auxilia a definição do tipo 4 de Yousem.
- A CK7 identifica a distribuição epitelial, permitindo avaliar de forma indirecta a extensão da lesão inflamatória.

- O anticorpo anti-TTF1 é facilmente revelado nos tipos 1 e 2 de Stocker, em relação com as áreas de alteração inflamatória, está ausente no tipo 3 de Stocker e questiona-se se células identificadas por aquele anticorpo permitem distinguir o tipo 0 do tipo 4 de Yousem.

**BIBLIOGRAFIA**

1. HIGBY K, MELENDEZ B A, HEIMAN H S. Spontaneous resolution of nonimmune hydrops in a fetus with a cystic adenomatoid malformation. *Journal of Perinatology*. 1998; 18(4):308-10.
2. WU Y C, HUNG J H, YANG M L, SHU L P, YUAN C C, NG H T. Prenatal diagnosis and management of congenital cystic adenomatoid malformation. *Chung Hua I Hsueh TsaChih- Chinese Medical Journal*. 2000; 63(7):581-5.
3. CASS D L, QUINN T M, YANG E Y, LIECHTY K W, CROMBLEHOLME T M, FLAKE ADZICK N S. Increased cell proliferation and decreased apoptosis characterize congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Journal of Pediatric Surgery*. 1998; 33(7):1043-6; discussion 1047.
4. MOROTTI R A, CANGIARELLA J, GUTIERREZ M C,

- JADIRDAR J, ASKIN F, SINGH G, PROFITT S A, WERT S E. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung (CCAM): evaluation of the cellular components. *Human Pathology*. 1999; 30(6):618-25.
5. ROBERTS D, SWEENEY E, WALKINSHAW S. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung co-existing with recombinant chromosome 18. A case report. *Fetal Diagnosis & Therapy*. 2001; 16(2):65-7.
  6. LIECHTY K W, CROMBLEHOLME T M, QUINN T M, CASS D L, FLAKE A W, ADZICK N S. Elevated platelet-derived growth factor-B in congenital cystic adenomatoid malformations requiring fetal resection. *Journal of Pediatric Surgery*. 1999; 34(5):805-10.
  7. MACKENZIE T C, GUTTENBERG M E, NISENBAUM H L, JOHNSON M P, ADZICK N S. A fetal lung lesion consisting of bronchogenic cyst, bronchopulmonary sequestration, and congenital cystic adenomatoid malformation: the missing link?. *Fetal Diagnosis & Therapy*. 2001; 16(4):193-5.
  8. PUMBERGER W, MORODER W, WIESBAUER P. Intraabdominal extralobar pulmonary sequestration exhibiting cystic adenomatoid malformation: prenatal diagnosis and characterization of a left suprarenal mass in the newborn. *Abdominal Imaging*. 2001; 26(1):28-31.
  9. CHANDRAN H, UPADHYAY V, PEASE P W. Congenital cystic adenomatoid malformation and extralobar sequestration occurring independently in the ipsilateral hemithorax. *Pediatric Surgery International*. 2000; 16(1-2): 102-3.
  10. WANG N S, CHEN M F, CHEN F F. The glandular component in congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Respirology*. 1999; 4(2):147-53.
  11. PORCU A, DESSANTI A, SCANU A M, FEO C F, COCCO L, DETTORI G. Tardive presentation of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Minerva Chirurgica*. 1998; 53(6):553-6.
  12. DAVID H DAIL, SAMUEL P HAMMER. *Pulmonary Pathology*. Segunda Edição, 1996. Springer-Verlag.
  13. TAKEDA S, MIYOSHI S, INOUE M, OMORI K, OKUMURA M, YOON H E, MINAMI M, MATSUDA H. Clinical spectrum of congenital cystic disease of the lung in children. *European Journal of cardio-thoracic Surgery*. 1999; 15(1):11-7.
  14. LEE S C, CHENG Y L, YU C P. Haemopneumothorax from congenital cystic adenomatoid malformation in a cryptorchidism patient. *European Respiratory Journal*. 2000; 15(2):430-2.
  15. NJINIMBAM C G, HEBRA A, KICKLIGHTER S D, BERNSTEIN A L, KATIKANENI L P, MULVIHILL D M, PUROHHIT D M. Persistent pulmonary hypertension in a neonate with cystic adenomatoid malformation of the lung following lobectomy: survival with prolonged extracorporeal membrane oxygenation therapy. *Journal of Perinatology*. 1999; 19(1):64-7.
  16. SITTIG S E, ASAY G F. Congenital cystic adenomatoid malformation in the newborn: two case studies and review of the literature. *Respiratory Care*. 2000; 45(10):1188-95.
  17. MAHLE W T, RYCHIK J, TIAN Z Y, COHEN M S, HOWELL L J, CROMBLEHOLME T M, FLAKE A W, ADZICK N S. Echocardiographic evaluation of the fetus with congenital cystic adenomatoid malformation. *Ultrasound in Obstetrics & Gynecology*. 2000; 16(7):620-4.
  18. DI GIORGIO A, AL MANSOUR M, CARDINI C L, FONSI G B, CARMENINI G, GUELI N. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung presenting as pyopneumothorax in an eighteen-year-old woman. *Journal of Thoracic & Cardiovascular Surgery*. 2001; 122(5):1034-6.
  19. LEJEUNE C, DESCHILDE A, THUMERELLE C, CREMER R, JAILLART S, GOSSELIN B, LECLERC F. Pneumothorax revealing cystic adenomatoid malformation of the lung in a 13 year old child. *Archives de Pédiatrie*. 1999; 6(8):863-6.
  20. WASZAK P, CLARIS O, LAPILLONNE A, PICAUD J C, BASSON E, CHAPPUIS J P, SALLE B L. Cystic adenomatoid malformation of the lung: neonatal management of 21 cases. *Pediatric Surgery International*. 1999; 15(5-6):326-31.
  21. HUBBARD A M, ADZICK N S, CROMBLEHOLME T M, COLEMAN B G, HOWELL L J, HASELGROVE J C, MAHBOUBI S. Congenital chest lesions: diagnosis and characterization with prenatal MR imaging. *Radiology*. 1999; 212(1):43-8.
  22. RENCKEN I O, SOLA A, GOULD R, GOODING C A. Direct coronal CT scanning of the neonatal chest. *Pediatric Radiology*. 1999; 29(6):451-4.
  23. PILLING D. Fetal lung abnormalities—what do they mean?. *Clinical Radiology*. 1998; 53(11):789-95.
  24. WINTERS W D, EFFMANN E L. Congenital masses of the lung: prenatal and postnatal imaging evaluation. *Journal of Thoracic Imaging*. 2001; 16(4):196-206.
  25. TAHER M, ABDELHAMID K, ABDELATIF C, KHALED T, BASMA H, AIDA M, SOUMEYA S G. Cystic adenomatoid malformation of the lung: A case report. *Tunisie Médicale*. 2000; 78(8-9):538-41.
  26. VAN LEEUWEN K, TEITELBAUM D H, HIRSCHL R B, AUSTIN E, ADELMAN S H, POLLEY T Z, MARSHALL K W, CORAN A G, NUGENT C. Prenatal diagnosis of congenital cystic adenomatoid malformation and its postnatal presentation, surgical indications and natural history. *Journal of Pediatric Surgery*. 1999; 34(5):794-9.
  27. ROGGIN K K, BREUER C K, CARR S R, HANSEN K, KURKCHUBASCHE A G, WESSELHOEFT C W JR, TRACY T F JR, LUKS F I. The unpredictable character of

- congenital cystic lung lesions. *Journal of Pediatric Surgery*. 2000; 35(5):801-5.
28. GRANATA C, GAMBINI C, BALDUCCI T, TOMA P, MICHELAZZI A, CONTE M, JASONNI V. Bronchialveolar carcinoma arising in congenital cystic adenomatoid malformation in a child: a case report and review on malignancies originating in congenital cystic adenomatoid malformation. *Pediatric Pulmonology*. 1998; 25(1):62-6.
29. ADIRIM T A, KING R, KLEIN B L. Radiological case of the month. Cnegenital cystic adenomatoid malformation of the lung and pulmonary blastoma. *Archives of Pediatrics & adolescent Medicine*. 1997; 151(10):1053-4.
30. D'AGOSTINO S, BONOLDI E, DANTE S, MELI S, CAPPELLARI F, MUSIL. Embryonal rhabdomyosarcoma of the lung arising in cystic adenomatoid malformation: case report and review of the literature. *Journal of Pediatric Surgery*. 1997; 32(9):1381-3.
31. KASLOVSKY R A, PURDY S, DANGMAN B C, MCKENNA B J, BRIEN T, ILVES R. Bronchioloalveolar carcinoma in a child with congenital cystic adenomatoid malformation. *Chest*. 1997; 112(2):548-51.
32. FEDERICI S, DOMENICHELLI V, TANI G, SCIUTTI R, BURNELLI R, ZANETTI G, DOMINI R. Pleuropulmonary blastoma in congenital cystic adenomatoid malformation: report of a case. *European Journal of Pediatric Surgery*. 2001; 11(3):196-9.
33. OZCAN C, CELIK A, URAL Z, VERAL A, KANDILOGLU G, BALIK E. Primary pulmonary rhabdomyosarcoma arising within cystic adenomatoid malformation: a case report and review of the literature. *Journal of Pediatric Surgery*. 2001; 36(7):1062-5.
34. DE PERROT M, PACHE J C, SPILIOPOULOS A. Carcinoma arising in congenital lung cysts. *Thoracic & Cardiovascular Surgeon*. 2001; 49(3):184-5.
35. PAPAGIANNOPOULOS K A, SHEPPARD M, BUSH A P, GOLDSTRAW P. Pleuropulmonary blastoma: is prophylactic resection of congenital lung cysts effective?. *Annals of Thoracic Surgery*. 2001; 72(2):604-5.
36. SAPIN E, LEJEUNE V, BARBET J P, CARRICABURU E, LEWIN F, BARON J M, BARBOTIN-LARRIEU F, HELARDOT P G. Congenital adenomatoid disease of the lung: prenatal diagnosis and perinatal management. *Pediatric Surgery International*. 1997; 12(2-3):126-9.
37. BUNDUKI V, RUANO R, DA SILVA M M, MIGUELEZ J, MIYADAHIRA S, MAKSOUD J G, ZUGAIB M. Prognostic factors associated with congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Prenatal Diagnosis*. 2000; 20(6):459-464.
38. STOCKER JT, MADEWELL JE, DRAKE RM: Congenital cystic adenomatoid malformation — classification and morphologic spectrum. *Huma Pathol* 1977; 8: 155-171.
39. KITAICHI M, YOUSEM S. Congenital pulmonary airway malformation – a new name for an expanded classification of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Histopathology* 2002; 41(2):424 – 458.
40. BENJAMIN DR, CAHILL JL. Bronchioloalveolar carcinoma of the lung and congenital cystic adenomatoid malformation. *Am J Clin Path* 1991; 95: 889-892.
41. RIBET ME, COPIN MC, SOOTS JG et al. Bronchioloalveolar carcinoma and congenital cystic adenomatoid malformation. *Ann Thorac Surg* 1995; 60: 1126-1128.