

Introducción

Palabras clave: Embolización arterial; Secuestro pulmonar extralobar; Secuestro intralobar; Secuestro pulmonar.

El secuestro pulmonar es una malformación congénita poco común, que se define como un segmento de tejido pulmonar que no tiene comunicación con el árbol traqueobronquial y que recibe su aporte sanguíneo a través de la circulación sistémica¹. Su diagnóstico varía de acuerdo a su presentación y síntomas asociados; el diagnóstico prenatal generalmente se asocia a otro tipo de malformaciones congénitas y en la mayoría de los casos son de presentación extralobar, sin embargo puede detectarse hasta la adultez cuando son intralobares, presentando hasta este punto manifestaciones inespecíficas.

Su manejo generalmente es quirúrgico y reservado para pacientes sintomáticos, sin embargo se ha descrito el manejo con embolización por angiografía del vaso nutricio como una nueva y menos invasiva aproximación a esta patología. Esta revisión presenta el caso atípico de un paciente diagnosticado de forma perinatal con secuestro pulmonar intralobar del lóbulo inferior izquierdo, nutrido por una rama accesoria de la aorta a nivel infradiaphragmático, manejado con embolización arterial con coil por angiografía.

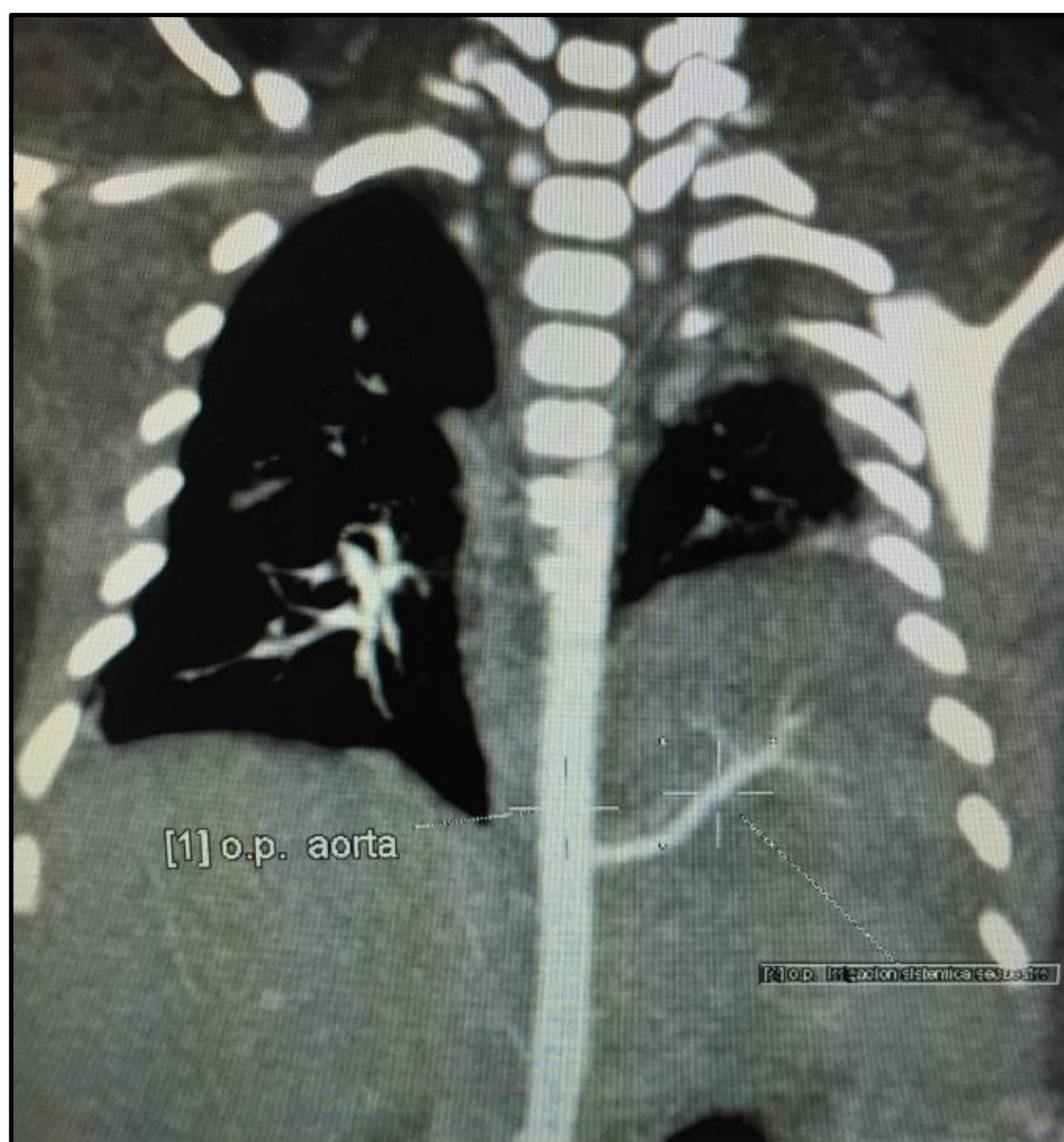


Figura 1. Angio TAC de tórax donde se evidencia arteria accesoria proveniente de la Aorta.

Bibliografía

- Colin R. Cooke MD, Bronchopulmonary sequestration Respiratory care, 2006, Vol 51 No 6.
- Savic B, Birtel FJ, Tholen W, Funke HD, Knoche R. Lung sequestration: report of 7 cases and review of 540 published cases. Thorax 2979; 34:96-101.
- Stocker JT. Sequestrations of the lung. Semin Diagn. Pathol 1986;3: 106-121
- Boopathy Vijayaraghavan S, Sreekrishna Rao P., Selvarasu. Prenatal Sonographic Features of Intralobar Bronchopulmonary Sequestration. J Ultrasoun Med 22:541-544, 2003
- Pryce DM. Lower accessory pulmonary artery with intralobar sequestration of lung: a report of 7 cases. J Pathol 1946;58:457-467
- Ramazan BÜyÜkkaya, Ayla BÜyÜkkaya, Zekariya Ilce, Besir Erdogmus, Adem KÜcÜk, Beyhan Öztürk. Role and importance of Doppler ultrasound in the dignosis of pulmonary sequestration: Report of two adolescent cases. Med Ultrason 2013, 15: 326-329
- Corbett JH, Humphrey GME. Pulmonary sequestration. Paediatr Respir Rev 2004;5:59-68.
- Kenneth W.Liechty, Alan W. Flake. Pulmonary Vascular malformations. Seminars in Pediatric Surgery (2008) 17, 9-16.
- Song-Wei Yue, Hua Guo, Yong-Gao, Jian-Bo Gao, Xiu- Xian Ma, Peng Xu Ding. The clinical value of computer tomographic angiography for the diagnosis and therapeutic planning of patients with pulmonary sequestration. European Journal of Cardio-Thoracic Surgery 43 (2013) 946-951
- Kuang-Jen Chien, MD; Ta-Cheng Huang, MD; Chu-Chuan Lin, MD; Cheng-Liang Lee, PhD; Kai-Sheng Hsieh, MD; Ken-Pen Weng, MD. Early and Late Outcomes of Coil Embolization of Pulmonary Sequestration in Children, 2009, Pediatric Cardiology

Descripción del caso

Presentamos el caso de un recién nacido masculino, hijo de madre de 23 años, con diagnóstico prenatal a las 26 semanas de gestación de malformación adenomatoidea quística (MAQ tipo II) en el pulmón izquierdo, que colapsaba el mediastino, traccionando el pulmón derecho y corazón. Fue llevada a cesárea programada a las 37 semanas, el recién nacido tuvo adecuada adaptación neonatal, y por su antecedente antenatal se recluta con CPAP. Requirió oxígeno de forma intermitente durante las primeras 48 horas de vida. En el primer día de vida se realizó tomografía axial computarizada (TAC) de tórax para caracterizar lesión evidenciada en el período prenatal, encontrando hallazgos compatibles con secuestro pulmonar intralobar del lóbulo inferior izquierdo nutrido por una rama accesoria de la aorta a nivel infradiaphragmático, y hallazgos de coartación aórtica preístmica con ductus arterioso persistente, estos hallazgos a nivel cardiaco fueron descartados con ecocardiograma. Cardiología pediátrica en conjunto con cirugía pediátrica deciden realizar manejo inicial intervencionista y al cuarto día de vida se llevó el recién nacido a embolización de arteria accesoria nutricia del secuestro pulmonar. Como única complicación, en el postquirúrgico inmediato presentó sangrado al retirar el catéter y requirió manejo con vendaje compresivo y reversión de anticoagulación. Siempre tuvo buena perfusión de las extremidades y los tiempos de coagulación no se alteraron. Egresó sin requerimiento de oxígeno.



Figura 2. Angiografía que evidencia llegada de flujo sanguíneo a arteria nutricia de gran calibre.

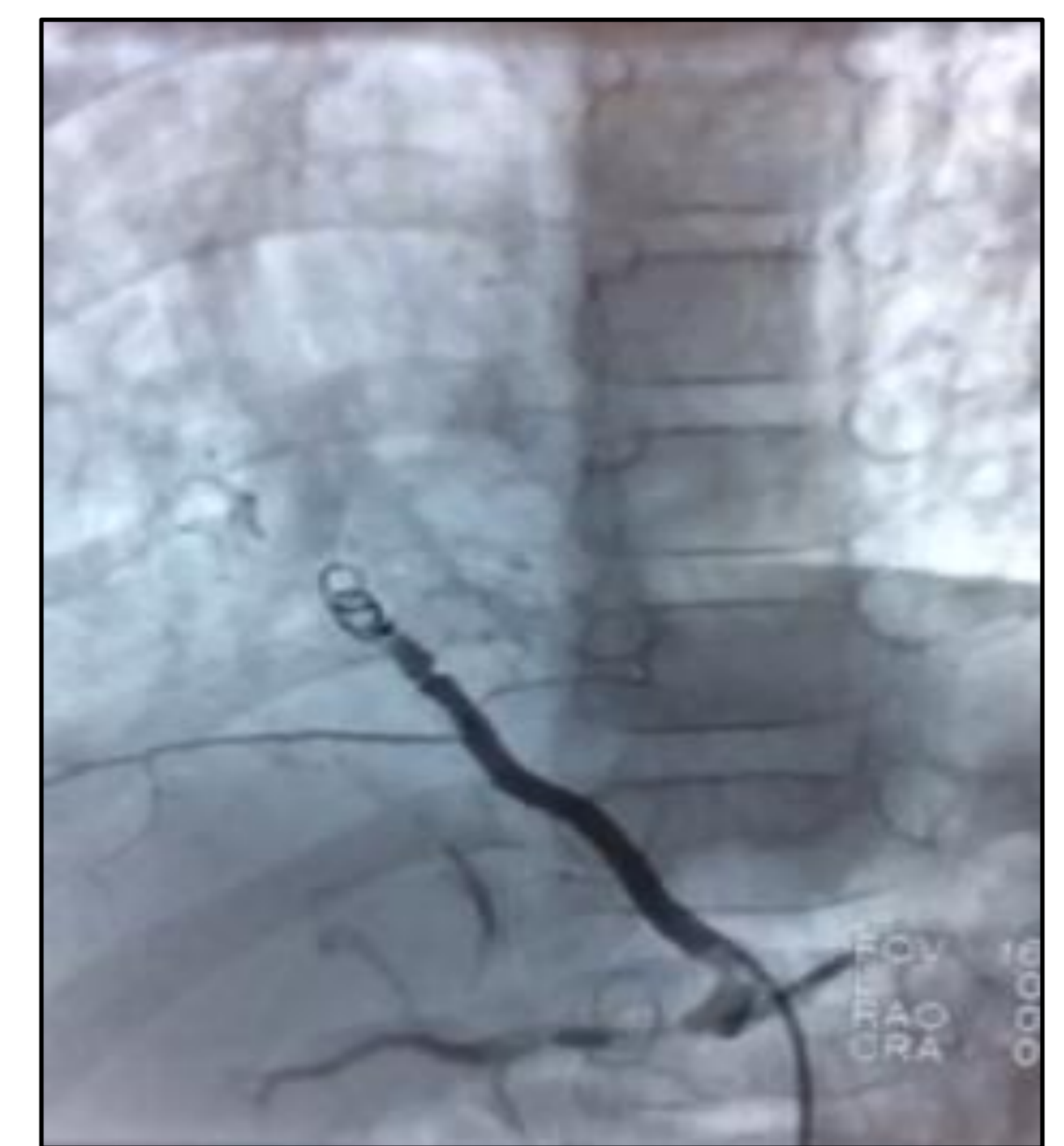


Figura 3. Imagen posterior a embolización con coil con evidencia de interrupción del flujo hacia la arteria nutricia.

Discusión

El secuestro pulmonar es una malformación congénita rara que representa el 0.15-6.4%^{2,3} de todas las malformaciones pulmonares. Es definida como un segmento de tejido pulmonar que no tiene comunicación con el árbol traqueobronquial y que recibe su aporte sanguíneo a través de la circulación sistémica⁴. El término secuestro pulmonar fue descrito por primera vez por Pryce en 1946, originario de la palabra en latín *sequestare*, que significa "separar"⁵.

Se clasifica de acuerdo a su localización la cual puede ser intralobar o extralobar. El secuestro intralobar es más frecuente que el extralobar con una relación 3:1, sin embargo el secuestro intralobar se presenta como una masa contigua al parénquima pulmonar normal y es recubierta por la pleura del tejido pulmonar contiguo, su irrigación proviene de una arteria de la circulación sistémica pero el drenaje es por lo general venoso, a la circulación pulmonar siendo en la mayoría de casos asintomático y es descubierto de forma incidental en la adultez; entre tanto, en el secuestro extralobar, la masa está anatómicamente separada del tejido pulmonar normal adyacente y es recubierta por su propia pleura visceral, y generalmente se asocia con otras malformaciones congénitas, principalmente hernia diafragmática hasta en un 30%^{2,6}, y por ende tiende a ser identificado en el periodo neonatal. Su irrigación es también derivada de la circulación sistémica, pero a diferencia del secuestro intralobar el drenaje venoso es hacia la vena ácigos. En nuestro caso, el diagnóstico se hizo prenatalmente lo cual es poco común, ya que por lo general el diagnóstico de esta entidad es hecho en la edad adulta y en la mayoría de casos de forma incidental.

Su etiología aun no es clara pero se ha descrito una hipótesis reciente en la cual se cree es el resultado de la formación de un brote pulmonar accesorio inferior a los brotes pulmonares normales durante el desarrollo. Durante la embriogénesis este brote pulmonar "accesorio" desarrolla un suministro vascular independiente, usualmente de la aorta, y sigue siendo independiente del desarrollo normal del árbol traqueobronquial⁷.

El diagnóstico prenatal se basa en la presencia de una masa ecogénica, la cual podría o no tener un componente quístico. Identificar la arteria nutricia de la aorta descendente es útil para hacer el diagnóstico prenatalmente y para diferenciar la masa de una malformación adenomatoidea quística del pulmón, en la cual no hay una suplenencia sanguínea⁴. En nuestro caso, prenatalmente se describió una masa ecogénica con un componente quístico, pero no se logró identificar la arteria nutricia por lo que se manejó el diagnóstico de MAQ tipo II.

La sobrevida en un paciente con secuestro pulmonar es mayor al 95%. Sin embargo, si hay hidrops fetal y no se da tratamiento puede llegar a ser fatal. Idealmente, un feto diagnosticado con un secuestro pulmonar grande debe ser remitido a un centro especializado donde se tengan todas las herramientas necesarias para una resucitación neonatal inmediata y adecuada, además de cirujano pediatra.⁸

Postnatalmente se debe realizar un angiografía por tomografía (angioTAC) o resonancia magnética nuclear (RMN) para delimitar la lesión y su vaso nutricional, además de excluir anomalías asociadas, y evaluar potenciales comunicaciones con el árbol traqueobronquial o el tracto digestivo^{8,9}. Dicho estudio se realizó en nuestro paciente y permitió detallar la lesión, el vaso nutricional, se descartaron otras malformaciones y se tomó la decisión terapéutica (Figura 1).

El tratamiento del secuestro pulmonar es controversial. Muchos autores consideran que los secuestros intralobares deben ser resecados debido a la comunicación con el espacio alveolar y el alto riesgo de infección asociado. Las excepciones para realizar resección son: Secuestros extralobares pequeños con drenaje sistémico y no venoso, que estén disminuyendo de tamaño o estables en el mismo y que no tengan un componente quístico. La lobectomía es el tratamiento de elección en un secuestro intralobar, que cada vez más se está haciendo por vía toracoscópica. No se recomienda la resección segmentaria por riesgo de hacer una resección incompleta y una más alta morbilidad.

Recientemente se han reportado resultados exitosos tratando estas lesiones por embolización arterial con coil y ha empezado a ser una buena y menos invasiva alternativa a la cirugía, especialmente en neonatos y niños, y basados en la regresión de la lesión en el seguimiento imagenológico por TAC^{8,9,10}. Sin embargo, las morbilidades asociadas y el riesgo de complicaciones vasculares hacen este método menos atractivo, cuando se compara con la resección toracoscópica que es un método más seguro. En nuestro paciente se realizó la embolización arterial con coil al cuarto día de vida, presentando como única complicación sangrado en el sitio de inserción del catéter, con una recuperación postoperatoria rápida, y una estancia hospitalaria no prolongada (Figura 2). A los 6 meses de vida se realizará control con TAC de tórax y se definirá si requiere nuevas intervenciones.