

PROGRESOS de OBSTETRICIA Y GINECOLOGÍA

www.elsevier.es/pog



CASO CLÍNICO

Secuestro broncopulmonar fetal con resolución espontánea intraútero

Ana Belén Partal Lorente*, Silvia Pérez López, Teresa Mena Ramírez,
María del Carmen Pallarés Ayuso, Vicente Maldonado Ezequiel y Juan Manuel Torres Martí

Unidad de Gestión Clínica de Obstetricia y Ginecología, Hospital Materno Infantil Ciudad de Jaén, Jaén, España

Recibido el 18 de mayo de 2011; aceptado el 31 de enero de 2012
Accesible en línea el 23 de marzo de 2012

PALABRAS CLAVE

Secuestro pulmonar;
Diagnóstico prenatal;
Pronóstico

KEYWORDS

Pulmonary
sequestration;
Prenatal diagnosis;
Prognosis

Resumen Presentamos un caso de secuestro broncopulmonar (SBP) sospechado en la ecografía morfológica de la semana 20 de gestación, debido al hallazgo de una imagen triangular ecogénica homogénea en el pulmón izquierdo del feto, que se confirma 2 semanas más tarde al detectar el vaso sistémico que irriga la lesión.

Debido a la ausencia de factores de mal pronóstico, se decide mantener una actitud expectante, observándose una disminución progresiva de la lesión hasta su completa desaparición ecográfica en la semana 37.

© 2011 SEGO. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Fetal bronchopulmonary sequestration with spontaneous intrauterine resolution

Abstract We present a case of bronchopulmonary sequestration suspected in the morphological ultrasound at 20 weeks of gestation based on the finding of a homogeneous hyperechoic triangular image in the left lung of the fetus, which was confirmed 2 weeks later with the observation of a blood vessel from the aorta feeding the mass. Due to the absence of poor prognostic factors, an expectant attitude was adopted, with a progressive decrease of the mass until its complete disappearance on ultrasound at 37 weeks.

© 2011 SEGO. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

El secuestro broncopulmonar (SBP) es una rara malformación congénita del tracto respiratorio que se caracteriza por una

masa de tejido pulmonar no funcionante, no comunicado con el árbol traqueobronquial¹. El diagnóstico se establece al observar por ecografía un aumento homogéneo de la ecogenicidad pulmonar y al identificar con el Doppler color la arteria sistémica que nutre la lesión, y que es característica de esta patología^{2–4}. Aunque actualmente la ecografía 3D Doppler puede aportar más sensibilidad al diagnóstico³, es la resonancia magnética nuclear fetal la que está adquiriendo más importancia como herramienta complementaria a la

* Autor para correspondencia.
Correo electrónico: anabelenpartal@hotmail.com
(A.B. Partal Lorente).



Figura 1 Corte longitudinal del tórax y el abdomen del feto en la semana 26 de gestación donde se observa la masa hiperecogénica pulmonar.

ecografía, para que nos permita establecer un diagnóstico más fiable de las lesiones pulmonares fetales⁵.

El pronóstico perinatal del secuestro pulmonar no complicado es favorable y justifica el manejo expectante, ya que en aproximadamente la mitad de los casos la lesión regresa antenatalmente de forma espontánea, sin necesidad de tratamiento posnatal^{3,6,7}. Sin embargo, una actitud más invasiva debe plantearse ante la presencia de derrame pleural o hídrops, ya que en estos casos el pronóstico fetal empeora drásticamente (fig. 1)^{3,8}.

Caso clínico

Primigesta de 27 años, sin antecedentes personales de interés, que presenta una ecografía del primer trimestre sin alteraciones de interés y con cribado prenatal de bajo riesgo. En la ecografía morfológica de la semana 20, se observa una pequeña lesión ecogénica homogénea en el pulmón izquierdo, sin ninguna otra alteración anatómica. Se realiza un control ecográfico en 15 días, persistiendo la presencia de una imagen triangular, hiperecogénica de $23 \times 27 \times 21$ mm en el pulmón izquierdo, con una desviación mediastínica leve hacia el lado derecho. Entre los hallazgos ecográficos también se encuentra un vaso que procede directamente de la aorta y que irriga esta lesión, estableciendo como diagnóstico de sospecha un secuestro pulmonar intralobar. El feto presenta una biometría acorde a su edad gestacional y no se observa ninguna otra alteración anatómica significativa. Debido a la ausencia de derrame pleural e hídrops fetal, se decide mantener una actitud expectante, realizando ecografías periódicas. En la evaluación ecográfica realizada un mes más tarde persisten los hallazgos fetales sugestivos de secuestro pulmonar izquierdo, aunque la lesión parece haber disminuido de tamaño en relación con la ecografía previa, puesto que permanece igual para un feto 4 semanas mayor. No se observan datos de hídrops ni de ascitis fetal. El corazón persiste levemente desplazado al lado derecho, pero es estructuralmente normal y presenta una desviación menor que en la anterior visita. La valoración Doppler de la arteria

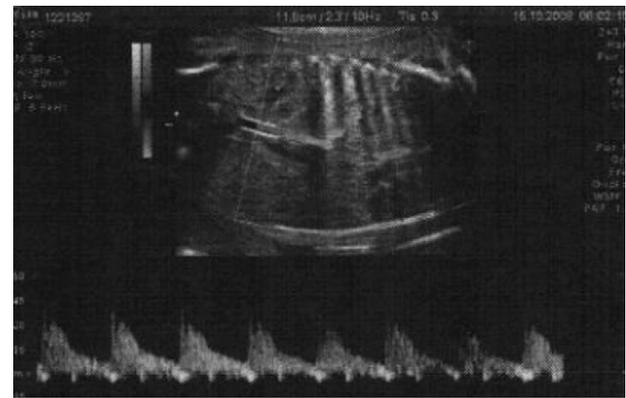


Figura 2 Corte transversal donde se observa la forma triangular hiperecogénica de la lesión.



Figura 3 Identificación del vaso sistémico que irriga la lesión.

umbilical y la arteria cerebral media es normal, al igual que el volumen de líquido amniótico (fig. 2). Se continuaron los controles ecográficos periódicos, observando una disminución progresiva en el tamaño de la lesión, llegando a su completa desaparición en la semana 37 de gestación. El embarazo finalizó de forma espontánea mediante un parto eutócico, con un recién nacido de 3.580 g y un Apgar 9/10 al nacimiento, sin necesidad de tratamiento por parte de pediatría. El control del neonato incluyó analítica, ecografía toracoabdominal y radiología de tórax, siendo todas las pruebas normales. Aunque se planteó la realización de una TC torácica, debido a la ausencia de sintomatología y a la regresión antenatal de la lesión, se decidió seguimiento del neonato, que un año más tarde continuaba asintomático (fig. 3).

Discusión

El secuestro pulmonar representa entre el 1 y el 6% de las lesiones torácicas, pero a pesar de ser una rara anomalía, es preciso tenerla en cuenta en todo feto con una masa sólida

torácica, especialmente si tiene forma triangular y está en el lóbulo inferior⁹.

El diagnóstico diferencial del SBP incluye otras lesiones quísticas pulmonares, como la malformación adenomatoidea quística (MAQ) que es la lesión torácica más frecuente². A diferencia del SBP, la MAQ está conectada al árbol traqueo-bronquial y su aporte sanguíneo proviene de la circulación pulmonar. Sin embargo, hay que tener en cuenta que son frecuentes los tumores híbridos, que contienen una mezcla de componentes quísticos y sólidos, pero que están irrigados por un vaso anómalo sistémico^{3,10}. De hecho, hay un estudio en el que 25 de los 50 casos de secuestro pulmonar estaban asociados a MAQ¹¹. En ausencia de hídrops, el pronóstico de la MAQ microquística, al igual que el SBP, es bueno, con una tasa de supervivencia superior al 95% sin necesidad de intervención antenatal. Sin embargo, los tipos macroquístico y mixto normalmente persisten a lo largo del embarazo y requieren toracotomía y lobectomía postnatal^{7,12,13}.

El diagnóstico diferencial del SBP incluye otras lesiones torácicas ocupantes de espacio, como la hernia diafragmática, el quiste broncogénico o el enfisema lobar congénito.

Como ya hemos comentado, el pronóstico del SBP no complicado, es decir, en ausencia de hídrops y derrame pleural, es muy favorable. De hecho, hay series que hablan de regresiones parciales o completas de las lesiones antenatalmente en hasta el 68% de los casos. Sin embargo, aunque la mayoría de estos niños están asintomáticos al nacimiento, y no se aprecian lesiones pulmonares ecográficamente ni en la radiografía de tórax, en gran parte de estos neonatos la lesión es visible al realizar una RM posnatal¹⁴.

Aunque no se sabe con seguridad, se piensa que la disminución de la ecogenicidad de la masa pulmonar fetal puede deberse a la pérdida de la interfase fluido/tejido en la gestación avanzada⁵. Por esta razón, hay autores que aconsejan la realización de estudios de imagen posnatales a todos los neonatos diagnosticados de una masa pulmonar fetal que se haya resuelto intraútero, ya que en muchos de ellos la lesión se detectará¹⁴.

Hay autores que defienden que en algunos de los casos en los que se produce la resolución antenatal de la lesión y no se demuestra en los estudios posnatales, una obstrucción baja del árbol respiratorio con retención de moco distal a la obstrucción, puede ser la causa subyacente de la hiperecogenicidad pulmonar. Durante la gestación, con el crecimiento y la maduración pulmonar, el mecanismo obstructivo puede revertir y la apariencia sonográfica de los pulmones volver a la normalidad^{15,16}.

Actualmente, existe una gran controversia respecto al seguimiento que debe hacerse a los neonatos diagnosticados de secuestro pulmonar y que permanecen asintomáticos. Hay autores que recomiendan la resección quirúrgica de estas lesiones durante el primer año de vida, con objeto de prevenir complicaciones, que pueden dificultar la cirugía. Las complicaciones más comunes son el distrés respiratorio, las infecciones pulmonares recurrentes y, con menos frecuencia, la hemoptisis y el fallo cardíaco por el alto flujo a través del vaso anómalo. También hay muchos pacientes en los que el diagnóstico se establece de forma casual en la edad adulta, al realizar una radiografía de tórax por otro motivo^{5,17}.

En aquellos casos en los que el secuestro pulmonar se asocia a derrame pleural, puede progresar hacia hídrops y muerte perinatal⁸. De hecho, en presencia de hídrops el

pronóstico fetal se ha descrito como extremadamente pobre, con unas tasas de mortalidad próximas al 100%^{3,8}. Por ello, en estos casos debe plantearse un posible tratamiento intraútero.

Podemos concluir que el secuestro pulmonar es una rara malformación pulmonar con buen pronóstico en la mayoría de los casos, siendo sólo preciso realizar controles ecográficos para comprobar su evolución. Aunque en muchos casos se producirá una regresión espontánea de la lesión, y el recién nacido está asintomático al nacimiento, es importante realizar una RM en el neonato para confirmar la persistencia de la lesión y realizar el correcto seguimiento y tratamiento de estos pacientes.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Oepkes D, Devlieger R, Lopriore E, Klumper FJCM. Successful ultrasound-guided laser treatment of fetal hydrops caused by pulmonary sequestration. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2007; 29:457–9.
- Harmath A, Csaba A, Hauzman E, Hajdú J, Pete B, Papp Z. Congenital lung malformations in the second trimester: prenatal ultrasound diagnosis and pathologic findings. *J Clin Ultrasound.* 2007;35:250–5.
- Hung J, Shen S, Guo W, Chen C, Chao K, Yang M, et al. Prenatal diagnosis of pulmonary sequestration by ultrasound and magnetic resonance imaging. *J Chin Med Assoc.* 2008;71:53–7.
- Bhide A, Murphy D, Thilaganathan B, Carvalho JS. Prenatal findings and differential diagnosis of scimitar syndrome and pulmonary sequestration. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2010; 35:398–404.
- Liu Y, Chen C, Shih S, Chen Y, Yang F, Chen S. Fetal cystic lung lesions: Evaluation with magnetic resonance imaging. *Pediatr Pulmonol.* 2010;45:592–600.
- Witlox RSGM, Lopriore E, Walther FJ, Rijkers-Mutsaerts ERVM, Klumper FJCM, Oepkes D. Single-needle laser treatment with drainage of hydrothorax in fetal bronchopulmonary sequestration with hydrops. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2009;34:355–7.
- Cavoretto P, Molina F, Poggi S, Davenport M, Nicolaides KH. Prenatal diagnosis and outcome of echogenic fetal lung lesions. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2008;32:769–83.
- Hayashy S, Sago H, Kitano Y, Kuroda T, Honna T, Nakamura T, et al. Fetal pleuroamniotic shunting for bronchopulmonary sequestration with hydrops. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2006; 28:963–7.
- Gomez G, Robert JA, Sepulveda W. Fetal retroperitoneal pulmonary sequestration with an atypical vascular pattern. *Prenat Diagn.* 2009;29:290–1.
- Aite L, Zaccara A, Trucchi A. When uncertainty generates more anxiety than severity: the prenatal experience with cystic adenomatoid malformation of the lung. *J perinatal Med.* 2009;37:539.
- Conran RM, Stocker JT. Extralobar sequestration with frequently associated congenital cystic adenomatoid malformation, type 2: report of 50 cases. *Pediatr Dev Pathol.* 1999;2:454.
- Mann S, Wilson RD, Bebbington MW, Adzick NS, Johnson MP. Antenatal diagnosis and management of congenital cystic adenomatoid malformation. *Semin Fetal Neonatal Med.* 2007;12:477.
- Crombleholme TM, Coleman B, Hedrick H, Liechty K, Howell L, Flake AW, et al. Cystic adenomatoid malformation volume ratio predicts outcome in prenatally diagnosed cystic adenomatoid malformation of the lung. *J Pediatr Surg.* 2002;37:331.

14. Lee BS, Kim JT, Kim EA, Kim K, Pi S, Sung K, et al. Neonatal pulmonary sequestration: Clinical experience with transumbilical arterial embolization. *Pediat Pulmonol.* 2008;43:404–13.
15. Achiro R, Strauss S, Seidman DS, Lipitz S, Mashlach S, Goldman B. Fetal lung hyperechogenicity: prenatal ultrasonographic diagnosis, natural history and neonatal outcome. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 1995;6:40–2.
16. Calvert JK, Boyd PA, Chamberlain PC, Said S, Lakhoo K. Outcome of antenatally suspected congenital cystic adenomatoid malformation of the lung: 10 years' experience 1991-2001. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed.* 2006;91:26–8.
17. Gezer S, Tastepe I, Sirmali M. Pulmonary sequestration; a single-institutional series composed of 27 cases. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2007;133:955.