

Secuestro pulmonar intralobular dependiente de una arteria intercostal

Sr. Director: Presentamos el caso de una mujer joven con múltiples episodios de infecciones respiratorias de repetición, en ocasiones con esputo hemoptoico, reacción pleural y un infiltrado pulmonar basal izquierdo, cuyo diagnóstico final fue un secuestro pulmonar intralobular con vascularización dependiente de una arteria intercostal. La rareza del caso reside en la irrigación arterial del secuestro, que procede de una intercostal, de los que únicamente hemos encontrado en la bibliografía 5 casos publicados.

Se trataba de una paciente de 25 años, fumadora de 10 paquetes/año, sin antecedentes de interés. Refería múltiples episodios, 2 o 3 al año, de tos, febrícula y expectoración mucopurulenta que mejoraban con tratamiento antibiótico. La enfermedad actual se inició un mes antes del ingreso con dolor pleurítico basal izquierdo, sensación distérmica, tos persistente con expectoración purulenta y en alguna ocasión hemoptoica. Ingresó en nuestro servicio para estudio. Destacaban únicamente a la exploración unos estertores crepitantes inspiratorios en la base izquierda. La analítica demostró una velocidad de sedimentación globular (VSG) de 38 mm y un fibrinógeno de 539 mg/dl, siendo el resto normal. Los estudios repetidos del esputo de microbiología y citología eran negativos. El Mantoux fue negativo, y la espirometría forzada era normal, igual que el ECG. La radiografía del tórax objetivó un infiltrado homogéneo, sin broncograma aéreo en la base pulmonar izquierda, más un pinzamiento del seno costofrénico del mismo lado. Tras una mejoría clínica, la paciente pidió el alta voluntaria y volvió a ser controlada un mes más tarde, ya que seguía con molestias torácicas, tos y expectoración mucopurulenta, sin observarse diferencias clínicas ni analíticas respecto a la anterior exploración, por lo que se decidió el ingreso para continuar el estudio. Se practicó una fibrobroncoscopia, donde se observaron restos hemáticos del lóbulo inferior izquierdo (LII), signos inflamatorios en la mucosa bronquial y acumulaciones de secreciones purulentas. Los cultivos y la citología del BAS fueron negativos. La tomografía axial computarizada (TAC) torácica demostró un patrón alveolar localizado en el LII, con una pequeña área de cavitación en su interior, y escasa cantidad de líquido pleural cercana a la lesión. La gammagrafía pulmonar demostró un déficit de perfusión en los segmentos anterior y laterobasales izquierdos del LII, indeterminado para la existencia de tromboembolismo pulmonar. El DIVAS pulmonar indicó un defecto de perfusión segmentario basal izquierdo. La arteriografía torácica puso de manifiesto una hipervascularización pulmonar dependiente de la novena intercostal izquierda en el segmento lateral del LII, con retorno venoso a las venas pulmonares. Se intervino quirúrgicamente, y se realizó una lobectomía inferior reglada. El informe anatómopatológico describía una zona del parénquima pulmonar anómala, asociada a fibrosis cicatricial y vascularización anómala, confirmando el diagnóstico de secuestro pulmonar intralobular.

Se considera secuestro cuando existe una porción del parénquima pulmonar que cumple dos condiciones: primero, que la morfología de la zona lesionada suele presentar alguna alteración en el desarrollo, preferentemente vascular. Segundo, la irrigación principal debe depender de una arteria sistémica, que en el 80% de los casos corresponde a la aorta torácica¹. El secuestro pulmonar intralobular es una malformación congénita consistente en un segmento desprendido del tejido pulmonar que recibe irrigación de una arteria anómala procedente de la aorta torácica o abdominal, o de una de sus ramas principales, mientras que el drenaje venoso va hacia las venas pulmonares, produciéndose un cortocircuito izquierdo-izquierdo. El área afectada contiene espacios quísticos tapizados por el epitelio cilado columnar. No existe conexión con el árbol bronquial normal, y es por tanto una parte del pulmón no activa. Se consideran dos tipos de secuestro, el intralobular y el extralobular, siendo más frecuente el primero en una relación 6:1¹. En el intralobular, la zona lesionada se encuentra cubierta por la pleura visceral normal del pulmón. El extralobular se hallaría fuera de esta cubierta pleural y se asocian otras malformaciones. El diagnóstico es por arteriografía selectiva. Sin embargo, en los últimos años la resonancia magnética ha empezado a perfilarse como una técnica esencial en el estudio del secuestro pulmonar². Hasta el año 1975 se habían descrito 450 casos de secuestro³. En dos tercios de los casos, el secuestro se localiza en el segmento inferior izquierdo y puede asociarse con otras anomalías congénitas como el divertículo esofagobronquial o la duplicación gástrica, y la existencia de tales asociaciones se da en 105 de estos casos. En una revisión de 114 casos de secuestro intralobular, únicamente cinco procedían de una arteria intercostal¹, siendo la mayoría dependientes de la arteria descendente torácica con 74 casos.

La imagen de la cavidad aérea que se visualizaba en la TAC y que confirma la AP se debe a la presencia de un absceso en el secuestro pulmonar, producido porque éste entra en contacto en algún momento con el interior del bronquio, lo que favorece las infecciones¹.

J. Serra Batlles, N. Roger y V. Plaza
Sección de Neumología. Servicio de Medicina Interna. Hospital General de Vic. Barcelona.

1. Estopá R, Ramírez J. Masa pulmonar cavitada en un varón de 19 años. *Med Clin (Barc)* 1992; 98: 790-796.
2. Lana R, Sánchez-Alarcos JMF, Arrazola J, Torres A, Martínez R, Álvarez-Sala JL. Diagnóstico definitivo del secuestro pulmonar por resonancia magnética. Descripción de tres casos. *Arch Bronconeumol* 1997; 33: 101-103.
3. Savic B, Birtel FJ, Tholen W, Funke HD, Knoche R et al. Lung sequestration: report of seven cases and review of 450 published cases. *Thorax* 1979; 43: 96-101.
4. Turk L, Newton Y, Lindsog GE. The importance of angiographic diagnosis in intralobar pulmonary sequestration. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1961; 41: 299-305.

Herniación diafragmática gigante del adulto y ventilación mecánica no invasiva. A propósito de un caso clínico

Sr. Director: La hernia diafragmática congénita de Bochdalek (HB) es infrecuente en la edad adulta, de curso asintomático, su diagnóstico con frecuencia es un hallazgo radiológico, constituyendo la cirugía el tratamiento de elección¹; no obstante, ante situaciones con grave deterioro de la función respiratoria y negación del paciente a la cirugía, la ventilación mecánica no invasiva (VMNI) puede constituir un tratamiento alternativo. Presentamos un caso.

Varón de 76 años, sin antecedentes traumáticos o quirúrgicos; desde los 56 años refería disnea con el esfuerzo. La radiografía del tórax (fig. 1A) a los 60 años de edad reveló una elevación del hemidiafragma derecho, con un nivel hidroaéreo supradiafrágico; un estudio con bario esófago gastroduodenal demostró una gran herniación diafragmática, con presencia de la cavidad gástrica, asas intestinales, bazo y epiplón en el tórax. La tomografía computarizada (TC) del tórax

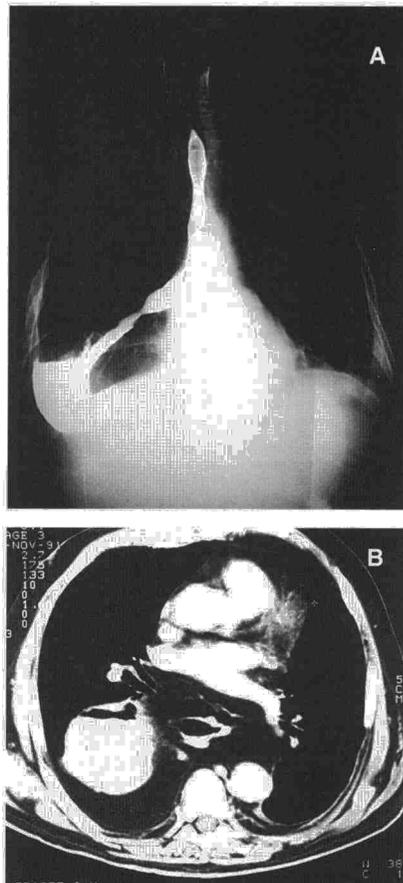


Fig. 1A. Radiografía del esófago gastroduodenal con presencia de la cavidad gástrica rotada en el tórax, por debajo del pulmón derecho. **B.** TC que demuestra un gran defecto del diafragma con herniación visceral abdominal, estómago y asas intestinales en el hemitórax derecho en el paciente con HB.



(fig. 1B) confirmó un gran defecto del diafragma con herniación visceral, estómago rotado y localizado por debajo del pulmón derecho, encontrándose éste atelectasiado. A los 76 años la situación respiratoria empeoró, presentando disnea de reposo, con cianosis central y periférica, taquipnea y disminución del murmullo respiratorio con presencia de ruidos peristálticos en el tórax. Laboratorio normal; gasometría arterial basal: pH 7,37, PaO₂ 44, PaCO₂ 33, HCO₃ 26 y SatO₂ del 86%, precisando intubación e ingreso en UCI. Al alta, tras la extubación presentaba FiO₂ 0,28, pH 7,39, PaO₂ 79, PaCO₂ 63, HCO₃ 39 y SatO₂ del 95%. La espirometría simple y la curva flujo volumen (decúbito): FVC 1.020 ml (35%), FEV₁ 912 ml (42%) e IdeT 89; FVC 1.540 ml (55%) en bipedestación. TLC 2.780 ml (49%), VR 1.240 ml (49%) y VR/TLC 44 (102%). Poligrafía nocturna (Aposcreen II): índice de apnea e hipoapnea (IAH = 4 episodios/hora); la oximetría nocturna reveló un índice de 34 desaturaciones/hora, SatO₂ basal del 87% y SatO₂ mínima del 71%. El trazado pulsioximétrico demostró un registro con SatO₂ < 85%, en un porcentaje superior al 15% del registro nocturno. La cirugía fue desestimada ante la situación respiratoria, el tiempo de evolución de su herniación diafragmática diagnosticada hacía 16 años y el rechazo a la cirugía por parte del paciente. Funcionalmente, se observó un defecto ventilatorio restrictivo, hipoventilación alveolar y disfunción diafragmática sin síndrome de apnea obstructiva del sueño (SAOS). Se inició tratamiento con VMNI con soporte de doble presión (BIPAP), siendo bien tolerada por el paciente, alcanzando presiones inspiratorias (IPAP) de 10 cm y espiratorias (EPAP) de 4 cm. La pulsioximetría nocturna con BIPAP modo S/T demostró un trazado con disminución de las desaturaciones; SatO₂ basal del 94%, SatO₂ mínima del 76% y tiempo de desaturación nocturna SatO₂ < 90% de 23 min. Gasometría arterial material (FiO₂ 0,21) tras BIPAP nocturna: pH 7,36, PaO₂ 40, HCO₃ 23 y SatO₂ del 94%. Después de un año de tratamiento, presentó una mejora de su calidad de vida, buena adaptación al tratamiento nocturno con BIPAP con aplicación media de 8 h cada noche, no precisando nuevos ingresos hospitalarios.

Las HB se originan por persistencia anómala del foramen pleuroperitoneal, descrita en 1848 por Bochdalek², y se presentan en el recién nacido o primera infancia, siendo muy infrecuente en el adulto como ocurrió en nuestro caso. Clínicamente, predominan las manifestaciones respiratorias en la infancia, siendo excepcionales en el adulto y predominando los síntomas digestivos, situación que no se dio en nuestro paciente, con compromiso respiratorio desde el inicio de la sintomatología. Frecuentemente, se localizan en el hemitórax izquierdo y excepcional en el lado derecho por la protección diafragmática del hígado. Son habituales las malformaciones congénitas asociadas: intestinales, renales y hepáticas con ectopias intratorácicas, secuestros e hipoplasias pulmonares y defectos pericárdicos^{1,3}. Los estudios radiológicos son fundamentales en la sospecha y posterior confirmación diagnóstica; la radiografía del tórax, los estudios con contraste y la aporta-

ción de la TC y la resonancia magnética son de ayuda inestimable en el diagnóstico de esta entidad³. La VM fue descrita inicialmente en 1832, pero no fue hasta 1928 cuando Drinker y Mekaha establecieron el prototipo de ventilador mecánico de pulmón de acero con impulso eléctrico, siendo ampliamente utilizado en las epidemias de poliomielitis en Europa y EE.UU. (1940-1960)⁴. Esta modalidad terapéutica incrementa la ventilación alveolar sin requerir invasión de la vía aérea; su uso se ha visto favorecido por la aparición de la presión positiva continua (CPAP) en los pacientes con SAOS y la aparición de ventiladores a presión positiva utilizando mascarillas nasofaciales⁵. La VMNI con presión binivel (BIPAP) ha sido recientemente introducida en la clínica; utiliza un flujo continuo de presión en inspiración y espiración, siendo de fácil manejo y bien tolerados; presenta ventajas al no poder utilizar presiones superiores a 22 cm, carecer de alarmas respiratorias y en casos de fugas aéreas presentar disconfort para el paciente⁶. Aun constituyendo un caso singular de HB, su asociación con complicaciones respiratorias puede constituir una indicación de VMNI, ampliamente utilizada en defectos de ventilación por enfermedad neuromuscular, toracógena, etc.^{5,6}.

J. Jareño Esteban, F. Villegas Fernández y L. Callol Sánchez

Servicio de Neumología. Hospital Militar Universitario del Aire. Madrid.

1. Carvajal JJ, Mallagray S, Peña L, Gómez P, Monterde G, Tello I. Hernia de Bochdalek del adulto con volvulación gástrica y secuestro extrapulmonar. Arch Bronconeumol 1995; 6: 287-290.
2. Bochdalek VA. Einige betchtugen über die entsehung des angerborenen zwerchfellbruches. Als bertrarg zur pathologischen anatomien des hernien. Vrtljschr Prakt Heilk 1848; 19-89.
3. Hulks G, Cowan MD, Kerr J. Asymtomatic renal thoracic ectopia, pulmonary hypoplasia, and Bochdalek hernia. Thorax 1990; 45: 635636.
4. Muir JF. Home mechanical ventilation. Thorax 1993; 48: 1.264-1.273.
5. Hills NS. Noninvasive ventilation. Am Rev Respir Dis 1993; 147: 1.050-1.055.
6. Braghiroli A, Donner CF. Bilevel positive airway pressure. Eur Respir Rev 1992; 2: 10, 398-399.

Bocio. Una causa inusual de quilotórax

Sr. Director: La prevalencia del quilotórax es del 0,5-2%¹. En la enfermedad tiroidea, el derrame pleural ocurre como complicación del mixedema en un 3% de los casos. En la bibliografía hay registrados únicamente 2 casos de bocio y quilotórax asociados, y sería nuestro deseo comunicar una nueva observación. En esta ocasión, el diagnóstico etiológico de bocio causante de quilotórax fue *ex juvantibus* tras la extirpación de un lóbulo tiroideo.

Mujer de 71 años con hemiparesia residual por accidente cerebrovascular, hipertensión arterial y neumonía basal derecha un año an-

tes, que consultó por disnea progresiva. En su exploración había palidez, eupnea, ausencia de disnea en reposo, edemas tibiomaleolares, ocupación tensa en la base cervical izquierda, hipoventilación basal derecha con semiología de derrame, roncus diseminados y signos de reperusión venosa superficial en el brazo izquierdo. En su estudio radiológico se observaron estenosis, desviación traqueal y derrame pleural derechos por una masa cervicotorácica izquierda. La gammagrafía tiroidea reflejaba actividad difusa y heterogénea. La resonancia magnética demostraba la proyección subesternal de la masa cervical (fig. 1) y su vecindad anatómica con el drenaje venoso braquiocéfálico. Se realizó una fibrobroncoscopia con incurvación traqueal derecha en "vaina de sable". PFR con FEV₁ 1.200 ml (52%) y FVC 1.900 ml (62,5%). El hemograma presentaba leucocitosis. La bioquímica sanguínea, la coagulación, la gasometría arterial basal y las hormonas tiroideas estaban dentro de la normalidad. La toracocentesis demostró la presencia de un quilotórax, un líquido lechoso, inodoro, cuyo análisis resultó en proteínas totales 2,2 g/dl, colesterol 75 mg/dl, triglicéridos 1.420 mg/dl, LDH 140 U/l y glucosa 112 mg/dl. Su recuento celular fue de 0,55 × 10⁹ hematíes/l y 2,3 × 10⁹ leucocitos/l (el 24% polinucleares y el 75% linfocitos). pH = 7,456. No se hallaron células tumorales. La tinción de Ziehl-Neelsen, el factor reumatoide y los anticuerpos antinucleares fueron negativos. El cultivo fue estéril. Se realizó toracoscopia para explorar las pleuras y mediastino y descartar un proceso tumoral o inflamatorio. Se extrajeron 2 l de derrame y no existían adherencias pleurales. Las pleuras y el mediastino eran normales y se biopsiaron para su estudio microscópico y microbiológico. Ante la ausencia de enfermedad pleural macroscópica se realizó pleurodesis con 3 g de Steritalc®. Se estableció nutrición parenteral total durante 5 días y fue dada de alta con una dieta basada en el aporte oral de ácidos grasos de cadena media como único aporte graso. A los 15 días no mostraba signos de recidiva. Dos meses después consultó por disnea y síntomas de compresión traqueal. Presentaba semiología auscultatoria y radiología de recidiva del derrame pleural derecho. Se realizaron su drenaje (características de quilo) y una lobectomía tiroidea izquierda mediante incisión de Kocher. En el postoperatorio se pautó nutrición parenteral total durante 10 días. El informe histológico fue de hiperplasia nodular tiroidea, y se le dio el alta hospitalaria con buen estado clínico y ausencia de derrame. Seis meses tras la lobectomía tiroidea, no había habido recurrencia del derrame pleural y el estado clínico era satisfactorio, estableciéndose el diagnóstico *ex juvantibus* de bocio como causa de quilotórax.

El quilotórax es una colección excesiva de fluido linfático en el espacio pleural, generalmente por rotura del conducto torácico (CT) o una de sus ramas. Su etiología es variable: congénito, traumático, neoplásico o infeccioso². Toda lesión del CT por debajo de T5 produciría un quilotórax derecho, mientras que una lesión más alta lo haría izquierdo. El sitio recomendable para su ligadura es entre T8 y T12³. La proporción de bocios cervicomedistínicos (BCM) con respecto al total varía entre el 4 y el 21%, predominando en las mu-