

Secuestro pulmonar: dos casos (intra-lobar y extralobar) en adultos, intervenidos quirúrgicamente

R. Arrabal Sánchez, A. Benítez Doménech, C. Pagés Navarrete, A. Fernández de Rota AVECILLA y J.L. Fernández Bermúdez

Servicio de Cirugía Torácica. Complejo Hospitalario Carlos Haya. Málaga.

Presentamos 2 casos de secuestro pulmonar, uno intra-lobar y otro extralobar, en pacientes adultos jóvenes y en los que se obtuvo el diagnóstico tras la resección quirúrgica.

El interés de los casos presentados se sitúa en el primero de ellos (secuestro intra-lobar) en su inicio con hemoptisis masiva, que requirió tratamiento quirúrgico urgente y, en el segundo caso (secuestro extralobar), en la localización poco frecuente en el mediastino superior y la resección por cirugía videotorascópica.

Palabras clave: Secuestro pulmonar intra-lobar. Secuestro pulmonar extralobar. Cirugía videotorascópica.

Arch Bronconeumol 1998; 34: 45-47

Introducción

Los secuestros pulmonares son malformaciones poco frecuentes, caracterizadas por la presencia de tejido pulmonar no funcional, generalmente no comunicado con el árbol bronquial normal, y que recibe usualmente su vascularización a través de una arteria sistémica anómala.

Los secuestros pueden ser: intra-lobares (en este caso la malformación es contigua con el parénquima pulmonar normal y se recubre de la misma pleura visceral del pulmón, teniendo el drenaje venoso a las venas pulmonares) y extra-lobares (rodeándose, en este caso, de su propia pleura, localizándose habitualmente junto al pulmón normal, aunque algunas veces dentro de o bajo el diafragma, y drenado a venas sistémicas)¹. Se entiende que esta clasificación y sus características es esquemática, existiendo excepciones en la misma.

Por tener estas dos entidades características patológicas que se solapan con las de otras malformaciones congénitas, y atendiendo a su origen embriológico, hay

Pulmonary sequestration: two cases (intra- and extrapulmonary) in adult surgery patients

We present two cases of pulmonary sequestration, one intra-lobar and the other extrapulmonary, in young adults. The diagnoses were obtained after surgical resection in both cases.

The cases are of interest in that the first (intra-lobar sequestration) debuted with massive hemoptysis requiring emergency treatment, and the second (extrapulmonary sequestration) involved an unusual location in the upper mediastinum, requiring surgery by video assisted thoracoscopy.

Key words: Pulmonary sequestration: intra-lobar, extrapulmonary. Video assisted thoracoscopic surgery.

autores que las agrupan bajo el término de "malformaciones broncopulmonares del intestino anterior"². El secuestro extra-lobar se diagnostica más frecuentemente en el período neonatal, con síntomas de distrés respiratorio, y en asociación con otras anomalías^{3,4}. Por otro lado, el origen congénito del secuestro intra-lobar es más debatido, existiendo varias series grandes que sostienen una etiología adquirida⁵, ya que se asocia casi siempre con cambios inflamatorios y es frecuentemente diagnosticado en adultos^{3,6}. No obstante, otros autores le atribuyen un origen congénito claro.

Casos clínicos

Caso 1

Varón de 28 años, sin antecedentes clínicos de interés, intervenido de urgencia por nuestro servicio por episodio de hemoptisis masiva (400-500 ml en 20 min) de repetición. Ingresado desde hacía una semana por un episodio de hemoptisis tratado con medidas conservadoras. A su ingreso el paciente presentaba un aceptable estado general, apirético y con algunos crepitantes en la base derecha, siendo el resto de la exploración sin hallazgos de interés. La analítica habitual fue normal salvo leucocitosis (17.200 leucocitos/mm³) con neutrofilia. En la radiografía y TC de tórax se observaba un infiltrado alveolar en el lóbulo inferior derecho (LID). La fibro-

Correspondencia: Dr. R. Arrabal Sánchez.
M. Altolaquirre, 33, 6.º D.
29720 La Cala del Moral. Málaga.

Recibido: 27-5-97; aceptado para su publicación: 3-6-97.

broncoscopia sólo reveló restos hemáticos en LID, siendo la baciloscopia de esputo y BAS negativas para BAAR y el cultivo positivo para *P. aeruginosa*. El tipo de resección realizada fue una lobectomía inferior derecha, presentando como única complicación postoperatoria fuga aérea durante 18 días, que se resolvió favorablemente. El estudio anatomopatológico mostró que se trataba de un lóbulo con alteraciones malformativas tipo secuestro intrapulmonar y con severa arteriosclerosis arterial pulmonar.

Caso 2

Mujer de 28 años de edad, sin antecedentes de interés, asintomática, en la que de modo casual se descubre en una radiografía de tórax una masa mediastínica, observándose en la TC que capta contraste y protruye en el hemitórax izquierdo (fig. 1). La analítica habitual (bioquímica y hemograma), gasometría arterial basal y pruebas funcionales respiratorias eran normales. Se realizó una fibrobroncoscopia que tan sólo revelaba una ligera compresión extrínseca en el bronquio segmentario anterior del lóbulo superior izquierdo (LSI), con citología del BAS negativa para células neoplásicas. Se remitió a nuestro servicio para intervención quirúrgica programada. Se realizó cirugía videotoroscópica, encontrando una tumoración sésil de 5,5 cm en la cara mediastínica del hemitórax izquierdo; se procedió a la disección y exéresis de la misma (fig. 2), extrayéndose por una minitoracotomía anterior. El postoperatorio cursó sin complicaciones y el estudio posterior de la pieza reveló que se trataba de un secuestro extrapulmonar.

Discusión

Los secuestros intralobares suponen entre el 0,15% y el 1,7% de todas las anomalías pulmonares congénitas⁷. La localización más frecuente es en los lóbulos inferiores, siendo la afectación de los lóbulos superiores y medio muy infrecuente⁸. Los primeros síntomas suelen aparecer antes de los 10 años de edad en el 37,2% de los pacientes, pero en el 15,5% de los casos la enfermedad permanece asintomática y se descubre de modo casual. Los síntomas más frecuentes son tos, expectoración y episodios recurrentes de neumonía. En algunos niños y adultos se producen cambios degenerativos arterioscleróticos en la arteria sistémica que nutre al secuestro, pudiendo llegar a producir hemoptisis severa^{9,10}, como en el caso 1 que presentamos. La hemoptisis leve es común, generalmente asociada a episodios de infección.

Los extralobares son generalmente asintomáticos, apareciendo como descubrimiento casual en un 10% de los casos^{7,11}, y la sintomatología está principalmente relacionada con las malformaciones congénitas asociadas¹², que aparecen hasta en un 50% de los casos⁷, aunque no en el caso intervenido por nosotros. El típico hallazgo radiológico es una masa homogénea, con densidad de tejidos blandos, en el hemitórax inferior (en el 77,4% de los casos se encuentra entre el diafragma y los lóbulos inferiores)⁷. Sin embargo, estas lesiones también pueden localizarse en el mediastino, dentro del diafragma y, más raramente, por debajo del diafragma⁴. La localización en el lado izquierdo es más frecuente en el caso del secuestro extralobar (80%)⁷; no existiendo preferencia de lado en el intralobar.

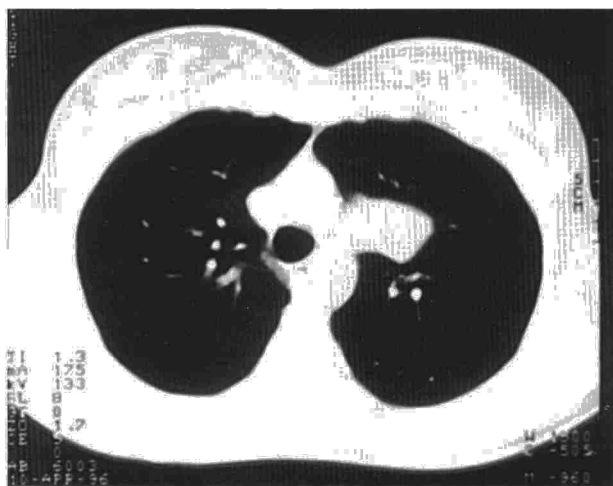


Fig. 1. TC torácica del secuestro extralobar, protruyendo en la parte superior del hemitórax izquierdo.

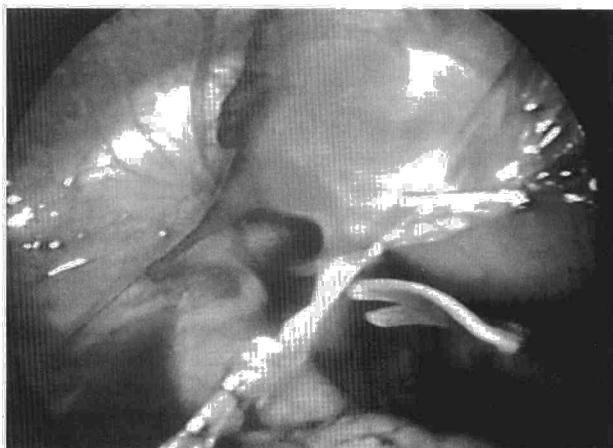


Fig. 2. Resección del secuestro extralobar (parte superior de la imagen) por cirugía videotoroscópica, en el momento de la sección de su pedículo vascular.

Los estudios complementarios incluyen una radiografía de tórax, que en la práctica totalidad de los casos va a presentar anomalías, y una TC torácica, donde la posibilidad de un secuestro pulmonar rara vez se sospecha inicialmente. En el caso en que aparezca como una masa de densidad uniforme no aireada y de localización en el lóbulo inferior, el diagnóstico diferencial se establece con el quiste broncogénico, hernia de Bochdalek o una neoplasia pulmonar o mediastínica. En caso de presentarse como un gran quiste simple con un nivel hidroaéreo o una lesión multiquística, el secuestro intrapulmonar puede ser confundido con un neumatocele, neumonía cavitada, bronquiectasia o absceso pulmonar⁸.

Si se sospecha un secuestro pulmonar clásicamente se ha considerado que se deberían hacer estudios angiográficos (aortografía), para la valoración de la irrigación arterial aberrante, lo cual permite un abordaje operatorio más seguro, aunque no siempre es posible demostrar el origen de la arteria nutricia¹¹. Además, la demostración de una arteria sistémica irrigando una porción de

pulmón, no es patognomónico de secuestro, y la arteriografía debe ser interpretada en el contexto de la presentación clínica y de los hallazgos radiológicos⁸. En ninguno de nuestros pacientes se realizó aortografía; en el primero por la indicación de cirugía urgente, y en el segundo porque, aunque el secuestro se consideró en el diagnóstico diferencial, por la localización de la lesión, poco frecuente para un secuestro pulmonar, ausencia de otras manifestaciones congénitas, etc., no se creyó necesaria la realización de estudios angiográficos.

Como alternativa a la arteriografía convencional, la RM se presenta como un procedimiento adecuado para el diagnóstico y la valoración prequirúrgica del secuestro pulmonar¹³.

El tratamiento de elección es la resección pulmonar: segmentectomía, si es posible, o lobectomía en caso de secuestro intralobar; o la simple exéresis en el extralobar. Incluso en los secuestros asintomáticos la mayoría de los autores recomiendan la resección profiláctica, debido a los potenciales peligros de infección y hemoptisis^{8,14}. La resección habitualmente se realiza por cirugía abierta, por toracotomía convencional; pero en casos seleccionados también es posible la resección por cirugía videotoracoscópica, como el caso que presentamos, aunque no hemos encontrado ninguna referencia en la bibliografía consultada. El pronóstico es excelente después de la resección.

Como conclusión hay que recalcar que el tratamiento de elección de esta infrecuente patología es la resección quirúrgica, especialmente obligatoria en los casos de hemoptisis y sobre todo si ésta es masiva, y tener en cuenta la posibilidad de un abordaje quirúrgico por videotoracoscopia (con las ventajas y limitaciones que esta técnica plantea), como en cualquier otro tipo de resección pulmonar.

BIBLIOGRAFÍA

1. Alteraciones del desarrollo pulmonar. En: Fraser RS, Paré JAP, Fraser RG, Paré PD, editores. Sinopsis de enfermedades del tórax (2.ª ed.). Madrid: Marban, 1996; 258-260.
2. Gerle RD, Jaretzky A, Ashley AC, Berne AS. Congenital bronchopulmonary-foregut malformatin. Pulmonary sequestration communicating with the gastrointestinal tract. N Engl J Med 1968; 278: 1.413-1.419.
3. Stocker JT. Sequestrations of the lung. Semin Diagn Pathol 1986; 3: 106-121.
4. Rosado-de-Christenson ML, Frazier AA, Stocker JT, Templeton PA. From the archives of the AFIP. Extralobar sequestration: radiologic-pathologic correlation. Radiographics 1993; 13: 425-441.
5. Nicolette LA, Kosloske AM, Bartow SA, Murphy S. Intralobar pulmonary sequestration: a clinical and pathological spectrum. J Pediatr Surg 1993; 28: 802-805.
6. Holder PD, Langston C. Intralobar pulmonary sequestration (a nonentity?). Pediatr Pulmonol 1986; 2: 147-153.
7. Savic B, Birtel FJ, Tholen W, Funke HD, Knoche R. Lung sequestration: report of seven cases and review of 540 published cases. Thorax 1979; 34: 96-101.
8. Gustafson RA, Murray GF, Warden HE, Hill RC, Rozar GE. Intralobar sequestration. A missed diagnosis. Ann Thorac Surg 1989; 47: 841-847.
9. Koyama A, Sasou K, Nakao H, Hirano A et al. Pulmonary intralobar sequestration accompanied by aneurysm of an anomalous arterial supply. Intern Med 1992; 31: 946-950.
10. Rubin EM, García H, Horowitz MD, Guerra JJ Jr. Fatal massive hemoptysis secondary to intralobar sequestration. Chest 1994; 106: 954-955.
11. Eizaguirre I, Tovar JA, Conde J. Secuestro pulmonar con fístula esofagobronquial. Aportación de dos casos y revisión de la literatura. An Esp Pediatr 1989; 31: 297-301.
12. Carvajal Balaguera JJ, Mallagray Casas S, Peña Gamarra L, Gómez Maestro P, Monterde García G, Tello López I. Hernia de Bochdalek del adulto con vulvulación gástrica y secuestro extrapulmonar. Arch Bronconeumol 1995; 31: 287-289.
13. 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.
14. Nuchtern JG, Harberg FJ. Congenital lung cysts. Semin Pediatr Surg 1994; 3: 233-243.