

UN CASO DE SECUESTRO BRONCOPULMONAR INTRALOBAR

L. MIR SAGRISTA, E. LOPEZ-BERMEJO MUÑOZ,
J. MESTRE RIERA* y F. DE LA CALLE DEL MORAL

Sección de Respiratorio.
Departamento de Medicina Interna.
Complejo Sanitario de la Seguridad Social
«Virgen de Lluç». Palma de Mallorca.

Introducción

El secuestro broncopulmonar es una malformación pulmonar congénita, que consiste en una masa normalmente quística, de tejido pulmonar aberrante, separada del resto del parénquima normal. No tiene por tanto conexión con el árbol bronquial ni con las arterias pulmonares, y está irrigado por una arteria aberrante sistémica. Esta malformación puede presentarse de dos formas: la intralobar, que es mucho más frecuente, y la extralobar¹⁻⁷.

Presentamos un nuevo caso de secuestro broncopulmonar intralobar a cuyo diagnóstico llegamos preoperatoriamente, dato éste de interés sobre todo para el cirujano, dado el peligro que existe de seccionar el vaso aberrante en el acto quirúrgico.

Caso clínico

Mujer de 58 años, sin hábitos tóxicos, sin antecedentes laborales de interés, con historia de bronquitis de repetición desde 10 años antes. Seis meses antes del ingreso presentó una hemop-

tisis que cedió espontáneamente no acudiendo a ningún centro hospitalario. Desde este episodio aquejaba aumento de su tos habitual, discreta expectoración mucosa, febrícula ocasional y disnea a medianos esfuerzos. Acude por presentar, desde varios días antes de su ingreso, un aumento de la disnea con sibilancias. A la exploración a su ingreso presenta un estado general conservado, buena coloración de piel y mucosas, sin cianosis ni acropaquias. Auscultación cardíaca normal. Auscultación res-

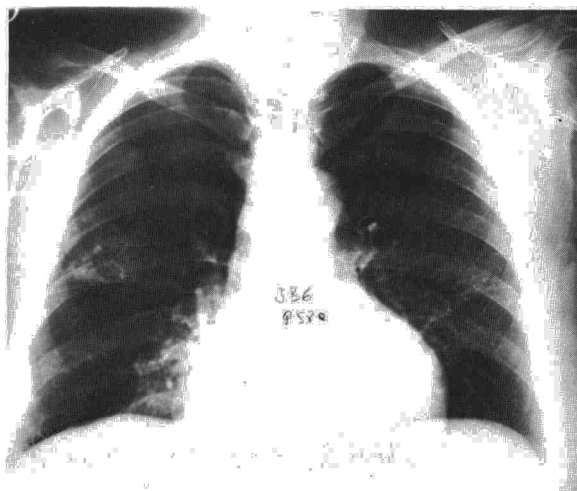


Fig. 1. Radiografía posteroanterior de tórax en la que se aprecian imágenes cavitadas en pulmón derecho.

* Servicio de Radiología.

Recibido el día 22 de julio de 1982.

TABLA I

	Teórico	Real	%	Bronco-dilatad.	%
VC	2.450	1.537	63 %	2.014	31 %
FEV1	1.860	922	49 %	1.462	48 %
FEV1 %	76 %	60 %		72 %	
MMF	2,25	0,51		106	

piratoria, roncus y sibilancias difusos. Resto de aparatos normales. Temperatura: 37,5° C. Tensión arterial: 16/9. Pulso: 90 x'. En la radiografía de tórax (fig. 1) se observan imágenes cavitadas del pulmón derecho. Gasometría (respirando aire ambiente): pH: 7,40, pCO₂: 42, pO₂: 79, Sat: O₂ %: 95 %. Analítica: leucocitos 7.400 (B: 0, E: 2, C: 4, S: 56, L: 40, M: 0); hemáticas 3.540.000; hemoglobina 12,3 g; hematocrito: 32; VCM: 87; CHM: 34; CHCM: 38; VSG: 36/65. Proteinograma normal y resto de analítica de sangre y orina normal. Hemocultivos negativos, PPD negativo y ECG normal. Valores espirográficos en la tabla I. Broncofibroscopia: proceso inflamatorio difuso del árbol bronquial derecho con mucosa bronquial enrojecida y ligeramente edematosa. Arbol bronquial izquierdo normal. Citología y bacteriología del broncoaspirado, negativa. Se practicó broncografía donde se aprecia imagen de compresión bronquial segmentaria pero sin comunicación (fig. 2). Dadas las alteraciones visualizadas con las técnicas descritas anteriormente, se practicó aortografía, donde se visualizó un vaso que irrigaba la zona pulmonar patológica (fig. 3). La paciente no ha querido intervenir.

Discusión

Esta rara anomalía congénita conocida desde hace unos 100 años¹, tiene importancia por asemejarse a otros tipos de patología pulmonar mucho más frecuente. No se conoce exactamente su embriogénesis^{1, 4, 5}. Las dos formas intra y extralobar tienen importantes diferencias. En la forma intralobar, la zona secuestrada está incluida en la pleura visceral del lóbulo pulmonar afectado y suele localizarse en el segmento basal posterior de un lóbulo inferior¹⁻⁴. El origen de la arteria aberrante acostumbra a estar en la aorta torácica descendente, aunque pueden hallarse otros orígenes^{1, 4, 7}. El diámetro del vaso aberrante varía entre 1 y 15 mm, y su tipo histológico es de «tipo pulmonar» con predominio de fibras elásticas^{1, 4, 7}. El retorno venoso se hace a través de venas pulmonares (shunt izquierda-izquierda), aunque pueden existir excepciones y drenar a otro sistema venoso, por ejemplo vena cava inferior, vena hemiacigos, etc.¹⁻⁹). Macroscópicamente el color de la zona secuestrada es gris-rojo pálido, de consistencia firme y elástica, existiendo dos grupos histológicos: la forma quística-bronquiectásica, que es la más frecuente y la que da sintomatología, y la forma pseudotumoral, mucho más infrecuente y que ofrece poca



Fig. 2. Broncografía que muestra compresión bronquial segmentaria, sin comunicación con la zona secuestrada.



Fig. 3. Aortografía que visualiza un vaso anómalo que irriga la zona pulmonar patológica.

sintomatología. Pueden existir bronquiectasias en el parénquima vecino^{1,3}. Asimismo se ha hallado, ocasionalmente en el interior del secuestro, colonización micótica, tuberculosis, calcificaciones, etc.¹

Las anomalías congénitas asociadas son mucho menos frecuentes que en la forma extralobar; entre éstas debemos citar divertículo esófago-bronquial, hernia diafragmática, deformidades esqueléticas, etc.^{1,4}

La sintomatología suele deberse a la infección de la zona secuestrada (por vía hematógena o por continuidad) y es inespecífica; en un 15 % de casos es asintomático y se descubre por azar¹. Los hallazgos radiológicos más frecuentes son: un área quística, un nivel aire-líquido, una sombra homogénea, etc.^{1,3} La tomografía axial computarizada es una exploración no invasiva que, aunque no sirve para el diagnóstico etiológico, puede ayudar para descartar otras patologías⁴. La broncofibroscopia informa poco de cara al diagnóstico, en cambio la broncografía es de mucha utilidad y puede mostrar: desplazamiento del árbol bronquial, no relleno de la zona secuestrada, etc.^{1,4} El paso diagnóstico definitivo es la visualización del vaso anómalo por aortografía retrógrada; antes de proceder a dicha aortografía puede ser útil realizar una angiografía nuclear para el diagnóstico de secuestro broncopulmonar, si bien no siempre evitará la práctica de la aortografía¹⁰.

El diagnóstico diferencial debe hacerse con: neumonía, enfisema bulloso, absceso pulmonar, neoplasia broncopulmonar, tuberculosis, bronquiectasis, quiste hidatídico, quiste pericárdico, hernia diafragmática, etc.¹

El tratamiento consta de dos apartados: el sintomático de la infección de la zona secuestrada, y el definitivo, que consiste en la resección de la zona secuestrada, frecuentemente lobectomía o neumectomía.

La forma extralobar es menos frecuente, y corresponde a una ectopia completa de tejido pulmonar aberrante, recubierta por su propia pleura visceral. Está localizada sobre todo entre el diafragma y el lóbulo inferior del lado izquierdo; su irrigación arterial proviene de ramas de la aorta torácica descendente y abdominal. El drenaje venoso se efectúa a través de las venas sistémicas (vena cava inferior, vena ácigos, etc.: shunt izquierda-derecha)¹⁻⁹. Suele ser también poliquistico y su pronóstico es peor que la otra forma, debido al mayor porcentaje de anomalías congénitas concomitantes, de las cuales predominan las diafragmáticas (hernia diafragmática y defectos diafragmáticos)¹. Un 60 % de casos dan sintomatología en la primera década de la vida, lo que contrasta con la forma intralobar¹. Raramente se infectan debido a su aislamiento, y no suelen dar sintomatología *per se*. Se manifiesta radiológicamente como una masa de tejido blando, homogénea de localización intratorácica o intrabdominal^{2,3}.

Para el diagnóstico podrán ser útiles la angiografía nuclear y el tránsito esófago-gastrointestinal, para descartar comunicación del secuestro extra y también intralobar con el esófago o estómago («pulmón esofágico»), pero la aortografía retrógrada, como ocurre en la forma intralobar, es la que da el diagnóstico definitivo^{3,10}.

La resección quirúrgica es el tratamiento de elección, y existen menos complicaciones que la forma intralobar¹. La toracotomía diagnóstica muchas veces será el medio que se empleará para diagnosticar el secuestro, en sus dos formas.

Pueden existir concomitantemente ambas formas de secuestro^{1,5,8}. Una complicación rara, pero a tener en cuenta ante un rápido aumento de tamaño de una pequeña masa localizada en una base pulmonar, es la hemorragia espontánea intrasecuestro¹¹.

Nuestro caso tiene como datos a reseñar el haber presentado hemoptisis como manifestación inicial.

Resumen

Se presenta el caso clínico de un secuestro broncopulmonar intralobar, diagnosticado preoperatoriamente por aortografía retrógrada. Se analizan las características clínicas, radiológicas, anatomopatológicas y terapéuticas de esta malformación pulmonar poco frecuente. El interés de este proceso recae en la demostración de la irrigación vascular.

Summary

INTRALOBAR PULMONARY SEQUESTRATION: A CASE REPORT

The authors present the case report of an intralobar pulmonary sequestration, diagnosed preoperatively with retrograde aortography. The clinical features, radiologic and pathologic aspects and management are analyzed for this rare pulmonary malformation.

The demonstration of vascular irrigation for the diagnosis is underlined.

BIBLIOGRAFIA

1. Savic B, Birtel FJ, Tholen W, Funke MD, Knoche R: Lung sequestration: report of seven cases and review of 540 published cases. *Thorax* 1979; 34: 96-101.
2. Fraser RG, Pare JAP: *Diagnosis of diseases of the chest*. Philadelphia, W.B. Saunders 1973; 537-541.
3. Felson B: *Chest roentgenology*. Philadelphia and London, W.B. Saunders 1977; 160-163.
4. Alvarez L, Burgos R, Iglesias A, Téllez G, Figuera D: Secuestro broncopulmonar intralobar: a propósito de un caso. *Rev Clin Esp* 1979; 153: 317-319.

5. Saegesser F, Besson A: Extralobar and intralobar pulmonary sequestration of the upper and lower lobes. Report of 11 cases including one case of similar syndrome. *Chest* 1973; 63: 69-72.
6. Marks C, Weiner SN, Reidman M: Pulmonary sequestration. *Chest* 1972; 61: 253-255.
7. O'Mara CS, Baker RR, Jeyasingham K: Pulmonary sequestration (Collective reviews). *Surg Gynecol Obstet* 1978; 147: 609-611.
8. Masaoka A, Masazumi Maeda MD, Yasumasa Monden MD, Kazuya Nakahara MD, Yasuhiko Tani MD: Total lung ectoplasia with systemic arterial supply. *Ann Thorac Surg* 1979; 27: 76-79.
9. Newton Turk L, Lindskog GE: The importance of angiographic diagnosis in intralobar pulmonary sequestration. *J Thorac and Cardiovasc Surg* 1961; 41: 299-305.
10. Baum S, Vincent NR, Lyons NR, Lyons KP: Atlas nuclear medicine imaging. New York, Appkton Century Crofts 1981; 308-340.
11. Reichert JR, Winkler SS: Spontaneous hemorrhage into an extralobar bronchopulmonary sequestration. *Radiology* 1974; 110: 359-360.