



SECUESTRO BRONCOPULMONAR INTRALOBAR DEL LÓBULO INFERIOR DERECHO: REPORTE DE TRES CASOS

A.D. Domínguez Pérez, R. Ocete Pérez, Á. Iglesias López, I. Olea Comas, Á. Valladares Otero, M.A. Iribarren Marín.

Unidad de Gestión Clínica de Radiodiagnóstico. Hospital Universitario Virgen del Rocío. Sevilla.

Este artículo no ha sido publicado previamente, declaramos no tener ningún conflicto de intereses y cedemos los derechos de su publicación a Revista Española de Patología Torácica.

Resumen

Presentamos una serie de tres pacientes con secuestros pulmonares intralobares del lóbulo inferior derecho, correlacionándolos con la clínica, los hallazgos histológicos de los pacientes sometidos a cirugía y los hallazgos radiológicos en pacientes tratados mediante embolización, una alternativa actual en el tratamiento de esta entidad.

Palabras clave: secuestro pulmonar, embolización arterial.

Intralobar bronchopulmonary sequestration of the right lower lobe: report of three cases

Abstract

A series of three patients is presented with intralobar pulmonary sequestration of the right lower lobe, correlating with the clinical and histological findings of patients undergoing surgery and the radiological findings in patients treated by arterial embolization, the current alternative in the treatment of this problem.

Key words: pulmonary sequestration, arterial embolization.

INTRODUCCIÓN

El secuestro broncopulmonar es un área de parénquima pulmonar irrigado desde circulación sistémica, que ha perdido el contacto con el árbol bronquial anatómico. Existen dos variantes de secuestro broncopulmonar según presente un recubrimiento pleural propio, secuestro extralobar (SE), o no, secuestro intralobar (SI). Presentamos 3 pacientes con secuestro pulmonar intralobar en el lóbulo inferior derecho (LID) con aporte desde una arteria frénica ipsilateral.

OBSERVACIÓN CLÍNICA

Caso 1: Mujer de 20 años, fumadora, que ingresó tras un episodio de hemoptisis. En la radiografía de tórax se apreció un velamiento difuso en la pirámide basal derecha. Ante la falta de resolución completa tras el tratamiento antibiótico se realizó una tomografía computerizada (TC) con contraste intravenoso apreciándose una condensación basal derecha asociada un drenaje venoso aberrante (figura 1A), sin poder establecer la arteria que lo nutría. Se practicó aortografía con sustracción digital (ASD) que demostró la irrigación desde una arteria frénica derecha hipertrofiada

(no mostrada). Tras lobectomía del LID, el estudio histológico confirmó el SI.

Caso 2: Mujer de 40 años, asmática, sin recuperación clínica tras una neumonía basal derecha. Un mes después persistía la imagen de ocupación alveolar en la Rx de tórax a nivel del LID, por lo que se realiza una TC torácica con contraste intravenoso que demostró una cavidad rellena de líquido de 10x8 cm con captación periférica (figura 1B), en relación a la sobreinfección, y un vaso afrente frénico que irrigaba al LID (figura 1C). Se realizó una lobectomía inferior derecha que objetivó un SI abscesificado y pleuritis aguda exudativa.

Caso 3: Mujer de 56 años con antecedente hace 34 años de lobectomía media por estenosis bronquial. Tras episodio de hemoptisis se realizó Rx y TC de tórax tras administrar contraste yodado intravenoso que evidenció una arteria aferente frénica derecha nutriente que se dirigía hacia una condensación basal en relación a sangrado (figura 2A). Se trató mediante embolización de la arteria frénica derecha (figuras 2B y 2C). La paciente no ha vuelto a presentar ningún otro episodio hemoptoico.

Recibido: 21 de diciembre de 2009. Aceptado: 15 de febrero de 2010.

Dr. Ángel Daniel Domínguez Pérez.
drdominguezperez@hotmail.com

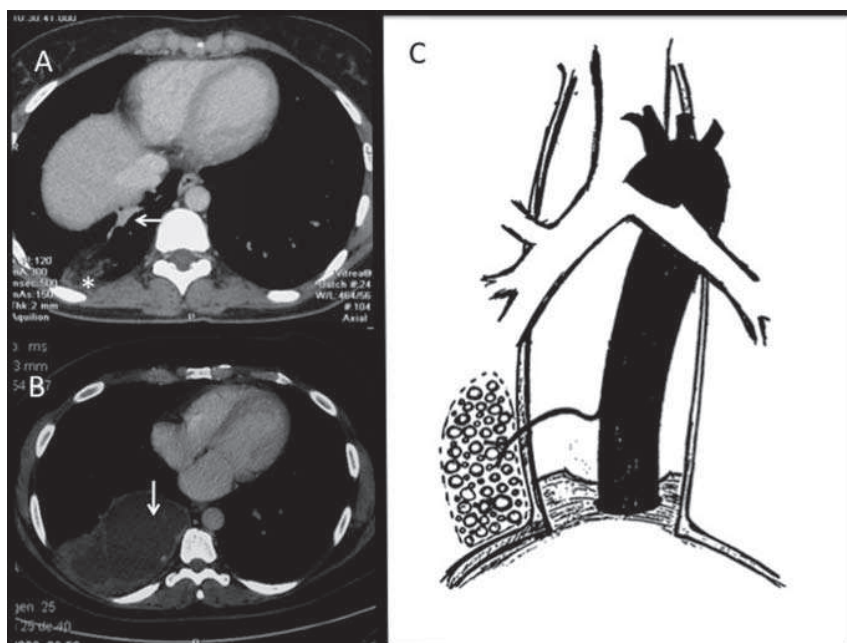


Figura 1.

1A: TC torácica con contraste IV que muestra una condensación basal derecha (asterisco) asociado a un drenaje venoso aberrante (flecha). 1B: TC torácica con contraste IV que muestra un absceso pulmonar, con límites hipercaptantes en relación a sobreinfección, que asociaba un aporte arterial desde arteria frénica derecha. 1C: Esquema de un secuestro pulmonar intralobar con aferencia arterial desde la aorta torácica.

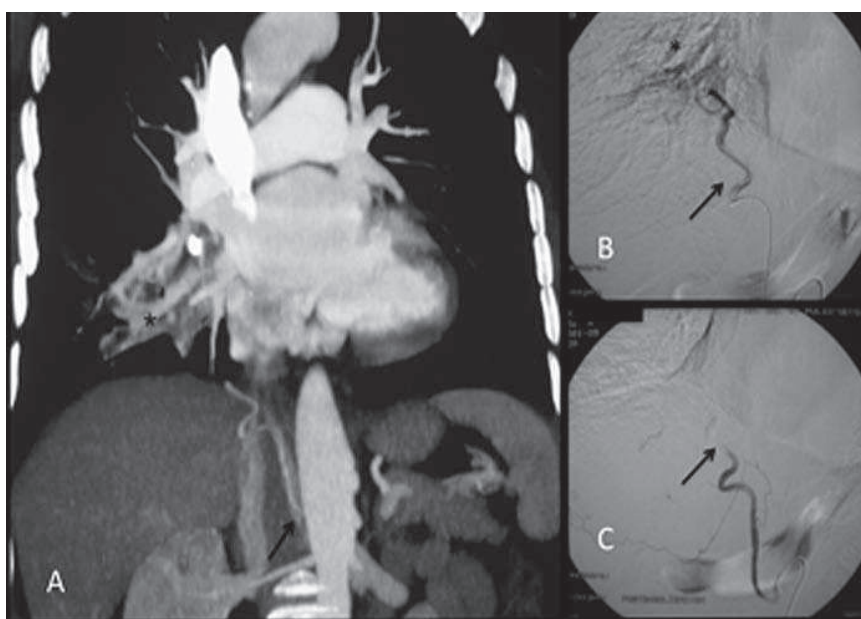


Figura 2.

2A: Reconstrucción coronal de angio-TC que muestra la salida desde aorta abdominal (flecha) de una arteria frénica que irriga al lóbulo inferior derecho, donde se visualiza una zona de condensación parenquimatosa (asterisco) correspondiente al sangrado. 2B: Angiografía con sustracción digital, tras cateterización selectiva de la arteria aferente, donde se demuestra un patrón anómalo de vascularización pulmonar (asterisco). 2C: Tras inyección de partículas embolígenas, se comprueba la no permeabilidad de la arteria aferente del secuestro intralobar.

DISCUSIÓN

El secuestro broncopulmonar, también denominado lóbulo de Rokitansky o enfermedad poliquistica de pulmón con irrigación arterial sistémica, término este último más explícito, fue descrito por primera vez en el año 1946¹. Tiene una baja prevalencia (0,15-6,4% del conjunto de las malformaciones congénitas pulmonares), y es más frecuente en el varón.

Existen dos tipos de secuestro broncopulmonar clásico; los extralobares, rodeados de su propia pleura visceral; y los SI, que comparten pleura con el resto del pulmón. Está descrita recientemente una tercera variante anatómica, consistente en el aporte arterial anómalo a un pulmón normal, es decir, a parénquima pulmonar dependiente del árbol bronquial anatómico².

Los SI, mayoritarios (75%), se irrigan desde la circulación arterial directamente, siendo el origen más frecuente la aorta torácica descendente (75%), y, en un número menor de casos, abdominal (20%), estando descritos otros orígenes arteriales³. El vaso aferente circula, habitualmente, por dentro del ligamento pulmonar inferior; mientras que el retorno venoso del SI suele ser drenado (95%) por venas pulmonares inferiores normales. Nosotros reportamos un caso (nº 1) que se asociaba a drenaje venoso pulmonar aberrante. Han sido descritos casos de SI con drenaje venoso mixto a circulación pulmonar y sistémica⁴.

En la actualidad, el origen congénito del secuestro es la teoría más aceptada⁵. Existen teorías, por contra, que hipotetizan sobre el origen adquirido del SI. Plantean que la infección recurrente pulmonar, provoca un desarrollo de un aporte arterial anómalo, como intento de suplencia arterial ante el compromiso parenquimatoso por la inflamación y que, por ello, el SI aparece con mayor frecuencia en población adulta⁶.

El espectro clínico puede incluir tos crónica, esputo purulento, neumonía recurrente, hemoptisis, incluso masiva (por ruptura de ramas de la arteria anómala sujetas a la fuerte presión aórtica), dolor torácico o insuficiencia cardíaca congestiva (por la gran fístula arteriovenosa que se puede establecer); siendo un 15-20% de los casos asintomáticos. La vía de infección es discutida, habiéndose teorizado una fistulización del secuestro a un bronquio, que perpetúa las sobreinfecciones favorecidas por mal drenaje⁷.

En el SI la histología objetiva cambios inflamatorios crónicos, fibrosis y áreas quísticas, así como cambios ateroscleróticos en el vaso aferente⁸.

El diagnóstico por imagen es indispensable en esta entidad. Suele aparecer como una masa de contornos

irregulares, que puede estar cavitada, con quistes internos, raramente calcificada o presentar niveles hidroaéreos en su interior por fistulización bronquial. Estas condiciones pueden tener su representación en la Rx convencional de tórax³. Es importante reconocer que las infecciones recidivantes en bases pulmonares pueden sugerir el diagnóstico. La ecografía hace posible la sospecha o diagnóstico del secuestro pulmonar in útero y la valoración de la arteria aferente. La incorporación de la multidetección a los actuales equipos TC posibilita una información anatómica detallada, ya que las reconstrucciones multiplanares y volumétricas, permiten una adecuada planificación quirúrgica y pueden ayudar a la detección de la anomalía vascular y la representación del vaso aferente. El uso de RM se reserva para cuando la TC no se encuentra indicada (casos de hipersensibilidad al yodo o en los que la exposición a radiación ionizante no es deseable, como niños, adultos jóvenes o embarazadas). Hoy por hoy, se considera a la TC multidetector como la prueba de primera línea en el diagnóstico del secuestro broncopulmonar⁹. Hasta hace poco, la angiografía que había sido el método diagnóstico de elección y planificación quirúrgica, pasa a considerarse indicada en casos problemáticos, como en la multiplicidad de vasos nutrientes o con calibre inferior a 3 mm⁸.

El tratamiento del SI suele ser quirúrgico, teniendo un pronóstico excelente tras la resección quirúrgica. La embolización del vaso aferente es una alternativa actual, y se indica cuando el paciente rechace la intervención quirúrgica. Está descrita la involución de la dilatación ventricular asociada a un SI extenso tras el cierre percutáneo del vaso aferente¹⁰. La involución espontánea del SI es rara, pero existen reporte de casos. Una alternativa quirúrgica, de reciente introducción, la supone el uso de la videotoracoscopia¹¹.

BIBLIOGRAFÍA

1. Pryce DM. Lower accessory pulmonary with intralobar sequestration of lung: report of seven cases. *J Pathol* 1946; 58: 457-67.
2. Son JS, Lee IS, Chang YP. Anomalous systemic arterial supply to normal basal segments of the right lower lobe in a neonate. *Pediatr Cardiol*. 2008; 29 (5): 1009-10.
3. Serra J, Roger N, Plaza V. Intralobar pulmonary sequestration depending of an intercostal artery. *Arch Bronconeumol*. 1998; 34 (6): 315.
4. Boetzkes S, Wojciechowski M, de Beukelaar T, Ramet J, Van Schil P. Intralobar bronchopulmonary sequestration with mixed venous drainage in a 10-year-old girl. *Acta Chir Belg*. 2009; 109 (4): 501-3.

5. Allen MS. Management of pulmonary arteriovenous malformations and sequestrations. In: Kenneth L. Franco, Joe B. Putnam Jr. Editors. *Advanced Therapy in Thoracic Surgery*. B.C. Decker Inc. Hamilton, Ontario 1998, 265-9.
6. Mechó S, Roque A, Tomasello A. Intralobar pulmonary sequestration. *Radiologia*. 2009; 51 (4): 445-6.
7. Arrabal R, Benítez A, Pagés C, Fernández A, Fernández JL. Pulmonary sequestration: 2 cases (intralobar and extralobar) in surgically treated adults. *Arch Bronconeumol*. 1998; 34 (1): 45-7.
8. Abbey P, Das CJ, Pangtey GS, Seith A, Dutta R, Kumar A. Imaging in bronchopulmonary sequestration. *J Med Imaging Radiat Oncol*. 2009; 53 (1): 22-31.
9. Yu H, Li HM, Liu SY, Xiao XS. Diagnosis of arterial sequestration using multidetector CT angiography. [en prensa]. *Eur J Radiol*.
10. Álvarez A, Borgia F, Guccione P. Regression of Left Ventricular Dilation After Percutaneous Closure of a Large Intralobar Pulmonary Sequestration. *Cardiol Young*. 2009; 30: 1-2.
11. Tsang FH, Chung SS, Sihoe AD. Video-assisted thoracic surgery for bronchopulmonary sequestration. *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2006; 5: 424-6.