

SECUESTRO PULMONAR CON RESOLUCIÓN QUIRÚRGICA UVATS, ¿ES POSIBLE? PRESENTACIÓN DE CASOS Y REVISIÓN BIBLIOGRÁFICA

García O. (1); Basile F. (1); Vila L. (2); Rosales A. (2); Rivero H. (3) Patane K. (4)
Hospital María Ferrer. Ciudad de Buenos Aires, Argentina.

1. Alumno de la Carrera de Especialista de Cirugía Torácica de la Universidad de Buenos Aires, Sede Hospital María Ferrer.
 2. Cirujano de Staff del Servicio de Cirugía del Hospital María Ferrer.
 3. Jefe de Unidad Quirúrgica Hospital María Ferrer.
 4. Jefa de Departamento Clínico Quirúrgico Hospital María Ferrer.
-

Introducción

El secuestro pulmonar (PS) es una malformación congénita de causa desconocida y de baja incidencia. Se presenta como un tejido pulmonar no funcionando, separado del árbol broncopulmonar normal y cuya irrigación depende de un sistema arterial aberrante e independiente de una rama de la arteria pulmonar (1). Existen dos tipos de PS, el intralobar (75% de los casos) y el extralobar (25% de los casos), dependiendo de si el tejido pulmonar anormal presenta o no su propia pleura. A continuación, se presentan dos casos clínicos evaluados en el Hospital María Ferrer, los cuales (fueron resueltos quirúrgicamente utilizando el abordaje UVATS (videotoracoscopia uniportal) tuvieron buena evolución con la resolución quirúrgica utilizando la cirugía asistida por video (UVATS)

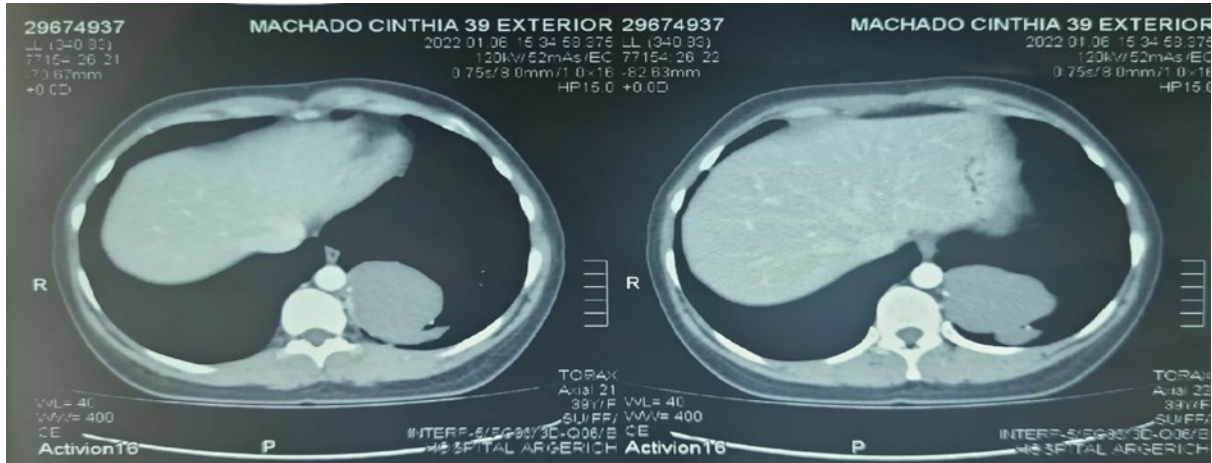
Casos Clínicos

Caso clínico número 1:

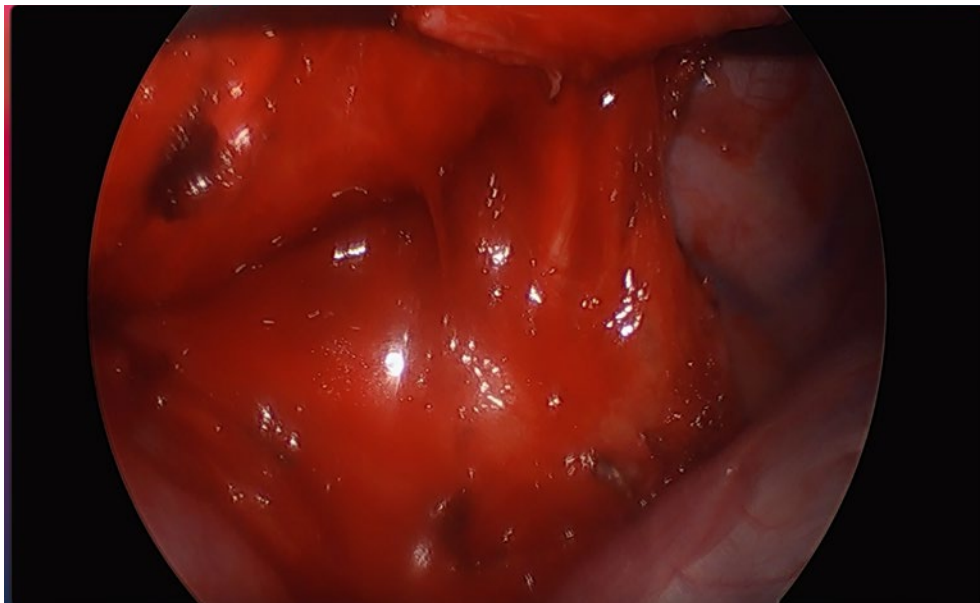
Paciente femenino de 39 años ex tabaquista de 15 pack/year, sin antecedentes quirúrgicos de relevancia, con múltiples consultas en los 6 meses previos por hemoptisis en otros centros de salud. En la tomografía axial computada (TAC) se observa: (imagen 1). Donde informaba: Se visualiza en sector posterobasal del lóbulo inferior izquierdo imagen de bordes definidos y lobulados con densidad de partes blandas la cual mide 62 mm x 74 mm. La cual presenta la aferencia de al menos 3 vasos desde la aorta descendente. Hallazgo compatible con secuestro pulmonar intralobar en primer término (Imagen I).

Se realizó una lobectomía Inferior Izquierda por Uniportal-VATS (imagen II y III), el paciente evolucionó de forma favorable y se le otorgó el alta a las 48 hs. (Imagen IV)

Anatomía Patológica: Lóbulo Inferior Izquierdo: Parénquima pulmonar con arquitectura con marcada congestión y vasos arteriales tortuosos. Presencia de cavidad neoformada rodeada por tejido fibroconectivo denso con vasos arteriolares y venosos neoformados. Se constata bronquio, vena y además arteria de avenamiento. Los hallazgos histológicos son consistentes con secuestro pulmonar en relación estricta con el informe de TAC.



*Imagen I: TAC con contraste endovenoso, se visualiza difusión de contraste endovenoso desde el afe-
rente de la aorta.*



*Imagen II: Seno costofrénico izquierdo, imagen inicial, donde se visualizan las arterias aferentes al
secuestro pulmonar proveniente de la aorta torácica.*

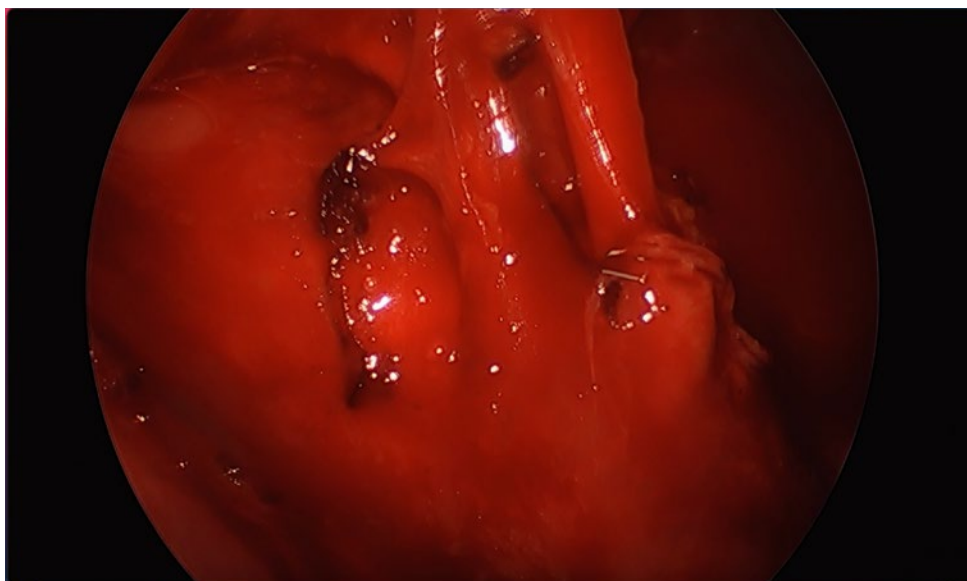


Imagen III: Arterias aferentes, en este caso cuatro, proveniente desde la ahora torácica.

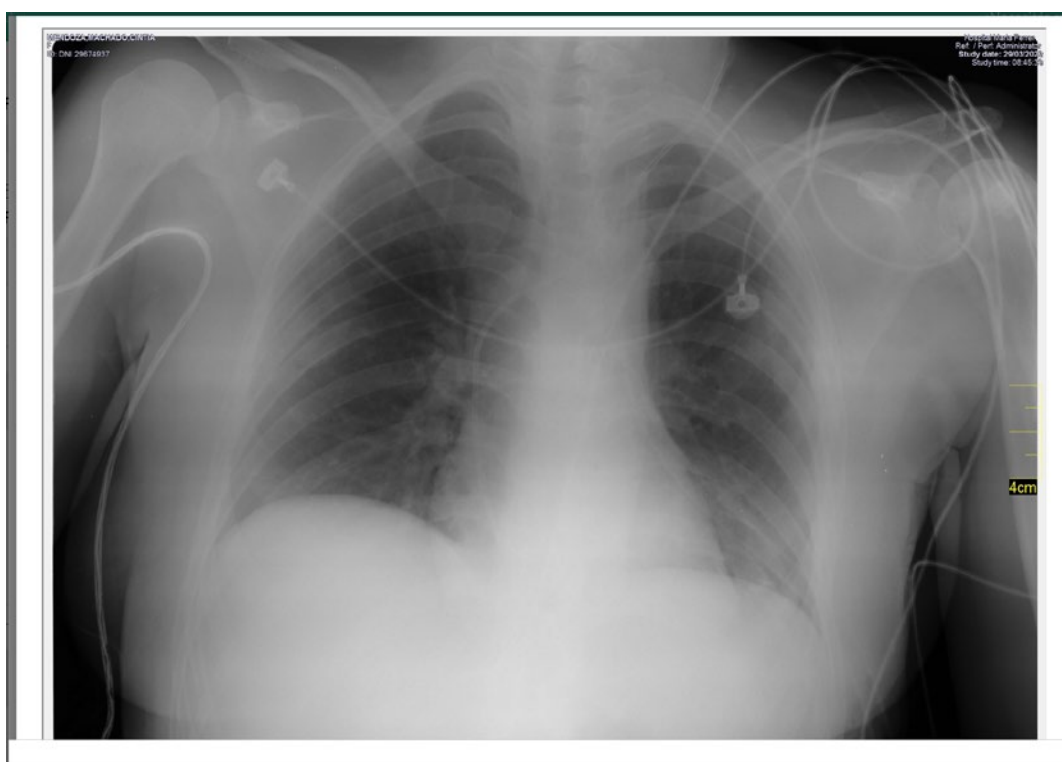


Imagen IV: 1er día postoperatorio lobectomía inferior izquierda UVTAS

Caso clínico número 2:

Paciente femenino de 63 años, tabaquista de 60 pack/year, en controles de rutina se realiza Rx y posterior TAC de tórax que informó una lesión sólida en el lóbulo inferior izquierdo de 42 x 28 mm, rodeado de un halo hipodenso compatible con secuestro pulmonar intralobar que presentó 2 arterias aferentes provenientes de la aorta torácica descendente (Imagen V - VI). Realizó una espirometría,

la cual informó: CVF 2,38 lts (82%); VEF 1,73 lts (78%) DLCO 74%. Se realizó una lobectomía inferior izquierdo por Uniportal-VATS (Imagen IV - V) y presentó buena evolución otorgándole el alta a los 3 días. Informe de Anatomía patológica: Lóbulo inferior izquierdo: Secuestro Pulmonar Intralobar. Ganglio N° 11 y mediastinal con hiperplasia folicular e histiocitosis sinusal.

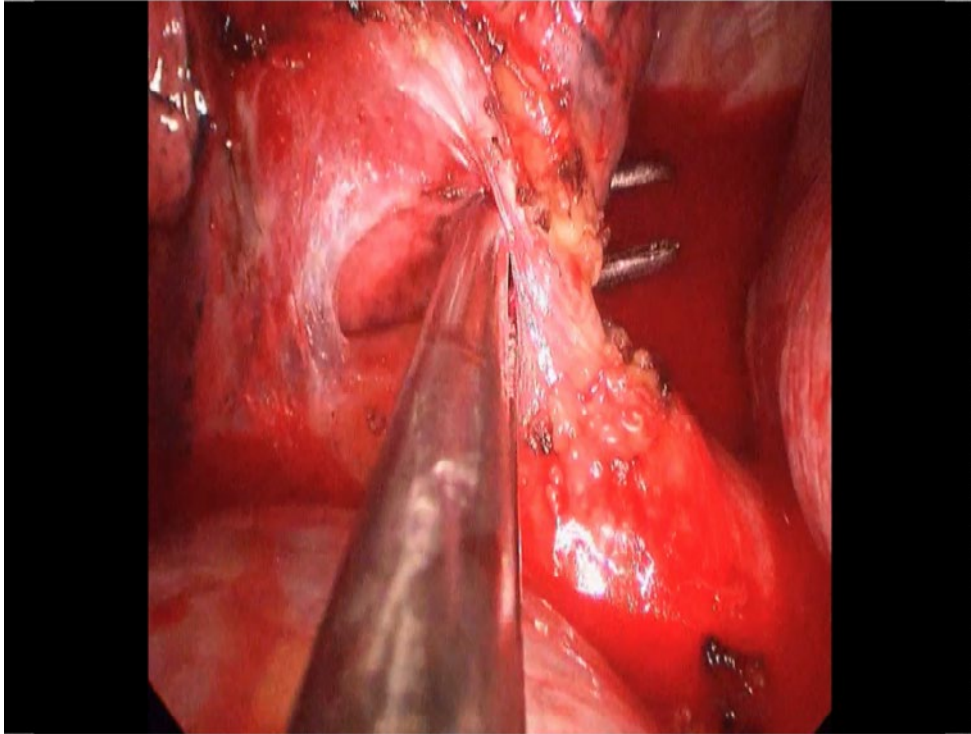


Imagen V: Disección por UVATS de vaso aferente desde la aorta

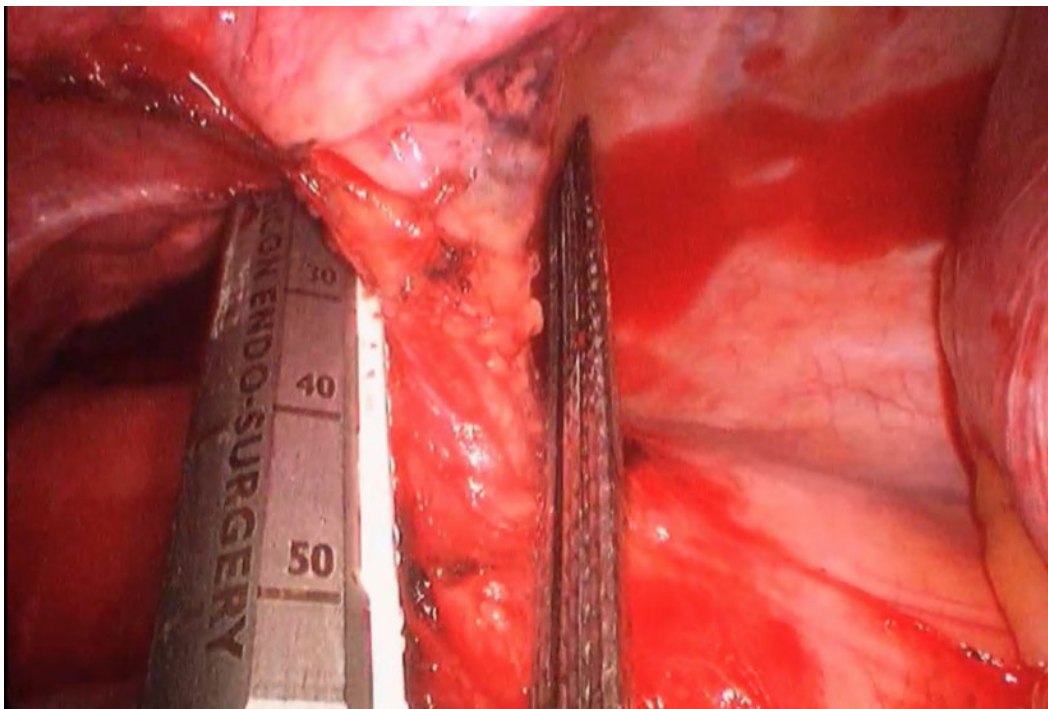


Imagen VI: Sección con endosutura blanca del vaso aferente de la aorta.

Discusión

El secuestro pulmonar es una malformación congénita de causa desconocida que consiste en un tejido pulmonar no funcionante desconectado del árbol bronquial normal y con irrigación que proviene de la circulación sistémica (2-3). Existen dos tipos de secuestro pulmonar: el intralobar (IL-PS) y el extralobar (EL-PS). En el IL-PS este tejido pulmonar anormal se encuentra incorporado dentro del parénquima pulmonar normal y el drenaje venoso se realiza a través de la vena pulmonar, suelen ser diagnosticados en la edad adulta. El EL-PS, en cambio, presenta su propia pleura y generalmente se diagnostica en los pacientes recién nacidos o en la infancia temprana (el 60% antes de los 6 meses de edad) (4 -5).

Desde que Rokitansky y Rektorzik describieron los primeros casos en 1861 más de 1000 casos han sido reportados. Muchas teorías explican el origen del PS, la mayoría apuntan a un origen congénito [3].

El (PS) representa entre el 0,15-6,45% de las malformaciones congénitas del pulmón, con una incidencia de 1/20.000 en la población general. (5, 6).

El IL-PS generalmente se localiza en el lóbulo inferior izquierdo y se presenta con bronquiolos alineados por un epitelio pseudoestratificado ciliado conservado con una infiltración celular de linfoplasmocitos inflamatorio (8-9). Por el contrario, el EL-PS se localiza con frecuencia adyacente al mediastino o al diafragma y se caracteriza por bronquiectasias que contienen áreas de bronquiolitis obliterante con zonas de neumonías organizadas.

En casi el 25% de los casos, los PS se presentan en asociación con otra malformación congénita. La más comúnmente asociada es la malformación adenomatoide quística congénita, que representa el 25% de todas las malformaciones congénitas pulmonares (MAC) (9). Estas lesiones se consideran una lesión quística hamartomatosa del pulmón y se agrupan en 3 tipos según su apariencia: quística, intermedia y sólida. Stocker luego les cambió el nombre a los tipos 1 a 3 y luego agregó el tipo 0 y el tipo 4, según el origen del tejido. El tipo 0, el más raro, es un pequeño quiste que surge del tejido traqueal o bronquial; el tipo 4 es un quiste grande de unos 10 cm que surge del tejido alveolar (10) siendo este el diagnóstico diferencial más frecuente con él IL-PS. Este espectro ampliado representó 5 grupos sucesivos de malformaciones de las vías respiratorias (11). PS se asocia más frecuentemente con el tipo 2 (12).

Los síntomas PS son variados. En una serie de 2625 casos en china la gran mayoría estaban asociados a síntomas compatibles con neumonía (13) Los IL-PS eran infecciones pulmonares fácilmente adquiridas, que se manifestaban como tos con esputo purulento, fiebre, etc. Sin embargo, el secuestro de EL-PS generalmente era asintomático o se descubren incidentalmente en un examen físico de rutina, que a menudo se diagnosticaba erróneamente como cáncer de pulmón (14).

Usualmente el diagnóstico se logra con ecografía intrauterina con el adicional del doppler durante la etapa prenatal, es un método no invasivo con una alta sensibilidad y especificidad (15) En los adultos se utiliza la tomografía computada con contraste endovenoso (TAC) y la resonancia magnética (RM) como métodos no invasivos con alto grado de sensibilidad y especificidad, mientras que la angiografía con sustracción digital es el gold standard para el diagnóstico, ya que es posible visualizar los vasos anómalos durante el estudio. Sin embargo, ésta última es un método invasivo con una tasa de complicación mínima pero presente, por lo que la TAC y la RM han ganado un gran valor y aceptación en el diagnóstico. (16- 17). En nuestro caso pudimos llegar al diagnóstico a través de TAC con contraste endovenosos, lo cual pondera este método no invasivo para llegar al diagnóstico.

Por lo tanto, hoy en día la indicación de primera línea debería ser VATS o Uniportal VATS. En nuestra presentación se observa como el uso de Uniportal VATS fue un método adecuado y seguro para realizar la resección. El tratamiento quirúrgico en tiempo oportuno debe ser considerado para la mayoría de los pacientes, especialmente para los pacientes con infección pulmonar recurrente o sospecha de cáncer que no se puede excluir (17). En el caso EL-PS sería necesario la resección total de la lesión, resección subsegmentaria no anatómica o resección subsegmentaria anatómica. En el caso de IL-PS sería necesario realizar la lobectomía como tratamiento. La mayoría de los

secuestros pulmonares tienen una sola arteria nutricia, pero el 20% aproximadamente tiene más de 1 arteria.

La lobectomía por cirugía torácica asistida por video (VATS) para el secuestro pulmonar fue reportada por primera vez por Wan et al. (18) en 2002. La extensión del uso de la VATS uniportal para la resección pulmonar no encontró su límite aún. De hecho, es el comienzo de todo el desarrollo continuo de diversas tecnologías que facilitan la VATS uniportal (por ejemplo, alcance de las tecnologías, diseño del material quirúrgico). La incisión única también fomentó la aplicación y la evolución de nuevos accesos quirúrgicos (p. ej. acceso subxifoideo, VATS guiado por imágenes, cirugía endoscópica transluminal por orificio natural, cirugía robótica) a un ritmo más rápido que nunca. (19) Están asociados al entrenamiento, el abordaje UVATS vs VATS requiere una curva de entrenamiento. A la hora de abordar estructuras vasculares elegimos endosutura mecánica, las cuales demostraron ser efectivas para tratar vasos arteriales sistémicos, entre otras opciones se encuentra la ligadura con sutura no absorbible o clips vasculares no absorbibles. De esta forma vemos que este método terapéutico presenta múltiples opciones a la hora de abordar los vasos sistémicos, siendo las endosutura mecánicas un método eficaz, seguro y rápido.

Por lo tanto, se concluye que el avance de la cirugía UVATS en la realización de resecciones pulmonares mayores para el tratamiento de los secuestros pulmonares intralobares es un método efectivo con resultados óptimos.

Bibliografía

- Gottrup F, Lund C. Intralobar pulmonary artery with intralobar sequestration of the lung: report of cases. *Journal of Pathology*; 1946; 457-467.
- Alsumrain, M., Ryu, J.H. Pulmonary sequestration in adults: a retrospective review of resected and unresected cases. *BMC Pulm Med* 18, 97 (2018).
- Liechty KW, Flake AW. Pulmonary vascular malformations. *Semin Pediatr Surg*. 2008;17(1):9–16.
- Stocker JT, Malczak HT. A study of pulmonary ligament arteries. relationship to intralobar pulmonary sequestration. *Chest* 1984; 86:611–615
- 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.
- Van Raemdonck D, De Boeck K, Devlieger H, Demedts M, Moerman P, Coosemans W et al. Pulmonary sequestration: a comparison between pediatric and adult patients. *Eur J Cardiothorac Surg* 2001; 19:388–95
- Gezer S, Taştepe İ, Sirmalı M, Findik G, Türüt H, Kaya S et al. Pulmonary sequestration: a single-institutional series composed of 27 cases. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2007; 133:955–9.
- Pryce DM. Lower accessory pulmonary artery with intralobar sequestration of lung: a report of seven cases. *J Pathol Bacteriol* 1946; 58:457–67.
- Conran RM, Stocker JT. Extralobar sequestration with frequently associated congenital cystic adenomatoid malformation, type 2: report of 50 cases. *Pediatr Dev Pathol* 1999; 2:454–63.
- Andrade CF, Ferreira H, Fischer GB. Congenital lung malformations. *J Bras Pneumol* 2011;37:259–71
- Stacher E, Ullmann R, Halbwedl I, Kammerer GM, Boccon GL, Nicholson A et al. Atypical goblet cell hyperplasia in congenital cystic adenomatoid malformation as a possible preneoplasia for pulmonary adenocarcinoma in childhood: a genetic analysis. *Hum Pathol* 2004; 35:565–70.
- Sfakianaki AK, Copel JA. Congenital cystic lesions of the lung: congenital cystic adenomatoid malformation and bronchopulmonary sequestration. *Rev Obstet Gynecol* 2012; 5:85–93.
- Wei Y, Li F. Pulmonary sequestration: a retrospective analysis of 2625 cases in China. *Eur J Cardiothorac Surg*. 2011 Jul;40(1):e39-42. doi: 10.1016/j.ejcts.2011.01.080. Epub 2011 Apr 2. PMID: 21459605.
- Matsuoka H, Nohara H. Pulmonary sequestration with high levels of tumor markers tending to be misdiagnosed as lung cancer. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg* 2006; 54:117–9
- Abbey P, Das CJ, Pangtey GS, Seith A, Dutta R, Kumar A. Imaging in bronchopulmonary sequestration. *J Med Imaging Radiat Oncol* 2009;53: 22–31.
- Francoa J, Aliagab R, Domingob ML, Plaza P. Diagnosis of pulmonary sequestration by spiral CT angiography. *Thorax* 1998; 53:1089-92.
- Au V, Chan JK, Chan FL. Pulmonary sequestration diagnosed by contrast enhanced three-dimensional MR angiography. *Br J Radiol* 1999; 72:709–11.
- Wan IY, Lee TW, Sihoe AD, Ng CS, Yim AP. Video-assisted thoracic surgery lobectomy for pulmonary sequestration. *Ann Thorac Surg* 2002; 73:639-40.
- Atlas of Uniportal Video Assisted Thoracic Surgery by Diego Gonzalez-Rivas, Calvin Sze Hang Ng, Gaetano Rocco, Thomas A. D'Amico.