

## Secuestro pulmonar intralobar

### Intralobar pulmonary sequestration

Denenke1 Basanta Bergolla<sup>1</sup> <https://orcid.org/0000-0002-3637-5264>

Pablo Salinas Vázquez<sup>1</sup> <https://orcid.org/0000-0002-1610-4926>

Junior Fernández-Maradiaga<sup>1</sup> <https://orcid.org/0000-0002-5166-9164>

<sup>1</sup>Hospital Clínico Quirúrgico “Hermanos Ameijeiras”. La Habana, Cuba.

\*Autor para la correspondencia. [denenkebb@infomed.sld.cu](mailto:denenkebb@infomed.sld.cu)

#### RESUMEN

El secuestro pulmonar es una malformación congénita del tracto respiratorio inferior, rara e importante. En niños y adultos suele presentarse con infecciones pulmonares a repetición o crónicas severas. Se describió un caso de una paciente de 19 años de edad que tuvo un cuadro de sepsis respiratoria bajas a repetición. En los estudios de imágenes de tórax se evidenció opacidad homogénea en hemitórax derecho. Fue intervenida quirúrgicamente; se le realizó una lobectomía inferior derecha la cual fue diagnóstica para secuestro pulmonar, con evolución satisfactoria.

**Palabras clave:** secuestro pulmonar intralobar; malformaciones congénitas; infección respiratoria recurrente.

#### ABSTRACT

Pulmonary sequestration is a rare and important congenital malformation of the lower respiratory tract. In children and adults, it usually presents with severe chronic or repeated lung infections. A case of a female 19-year-old patient who had recurrent lower respiratory sepsis is reported. Homogeneous opacity was evident in the chest imaging studies in the right hemithorax. She underwent surgery. A lower right lobectomy was performed, which was diagnostic for pulmonary sequestration, with satisfactory evolution.

**Keywords:** intralobar pulmonary sequestration; congenital malformations; recurrent respiratory infection.

Recibido: 25/12/2019

Aprobado: 15/02/2020

## Introducción

El secuestro pulmonar es una malformación rara, congénita, del tracto respiratorio inferior y responsable de 0,15 %-6,4 % de todas las malformaciones pulmonares congénitas.<sup>(1)</sup> Es una masa de tejido pulmonar que no funciona y atípica, que se encuentra separada del resto del pulmón normal y que obtiene su propia nutrición sanguínea por una arteria sistémica.<sup>(2)</sup> Puede ser de dos tipos bien diferentes: a) secuestro pulmonar intralobar (SIL) 75 %, cuando está al lado de un parénquima pulmonar normal y se mantiene recubierto por la misma pleura visceral que el pulmón sano, o b) secuestro pulmonar extralobar (SEL) 25 %, cuando está revestido por una pleura visceral propia e independiente de la del pulmón normal.<sup>(3)</sup> El SIL casi siempre ocurre en los lóbulos inferiores (98 %) y de predominio en el lado izquierdo (55 %), el SEL es frecuentemente encontrado en el surco costo diafragmático posterior.<sup>(2)</sup> El objetivo de nuestro trabajo fue describir una malformación congénita pulmonar poco frecuente, con diagnóstico definitivo quirúrgico realizado en la edad adulta.

## Presentación del caso

Paciente femenina, de 19 años de edad, mestiza, soltera. Antecedentes familiares: madre fallecida hace 6 años por cáncer gástrico. Antecedentes personales: prematura de 35 semanas de gestación con displasia broncopulmonar (10 días de recién nacida) e infecciones respiratorias frecuentes desde la niñez (3 años). Neumonía adquirida en la comunidad (NAC) grave 2015 y 2017 (tres ocasiones cada 3 meses).

Motivo de consulta: disnea, tos y fiebre. Como enfermedad actual la paciente acudió a consulta externa del servicio de neumología por presentar disnea grado 1 según la escala Medical Research Council (MRC), tos con expectoración blanquecina de poca cantidad e intensidad sin predominio en el horario y alza térmica de 38° C por las noches. Se le indicó cumplir terapia con Amoxicilina y Azitromicina vía oral por 10 días sin mejoría de su cuadro clínico. Se realizó una radiografía de tórax (fig. 1) en la cual se observó una opacidad

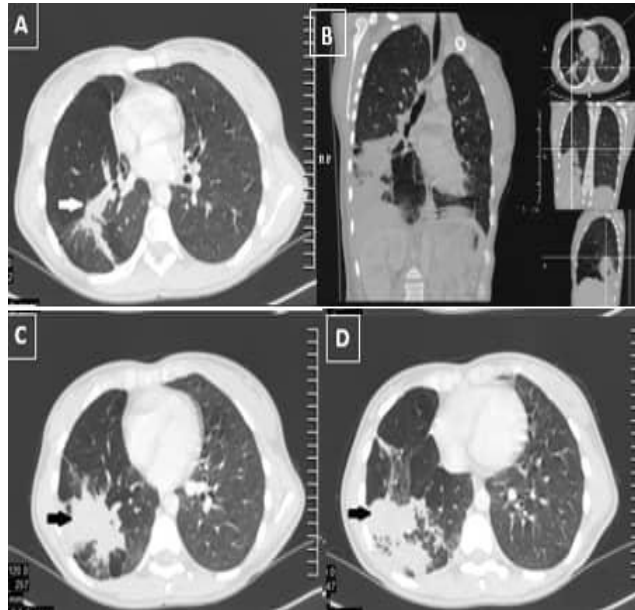
homogénea en lóbulo inferior derecho de aproximadamente 5 x 7 cm de diámetro. Por tal motivo se decide en el colectivo su ingreso al piso de neumología para completar estudios.



**Fig. 1** – Rayos X de tórax PA. Se observa lesión opaca en base pulmonar derecha.

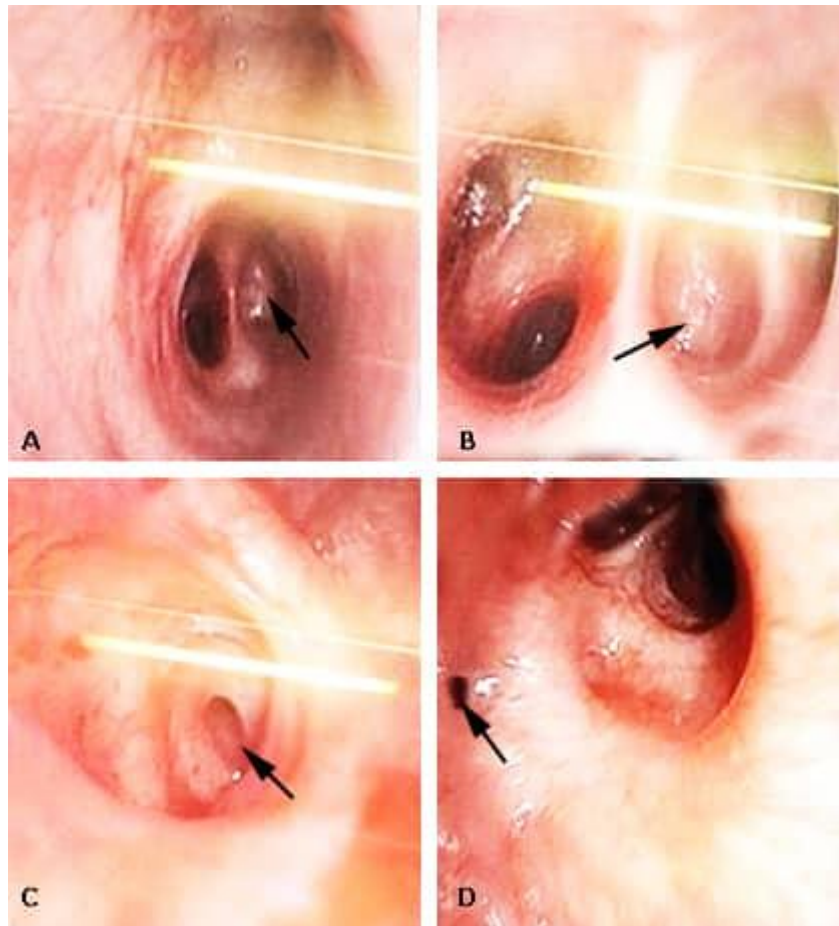
Al examen físico se encuentra una PA: 120/80 mmHg, FC: 120 l pm, FR: 17 rpm, T: 37, 9° C, Sat O<sub>2</sub>: 98 %. Tórax y pulmones: inspección: normal; palpación: disminución de las vibraciones vocales en el tercio inferior del campo pulmonar derecho (CPD); percusión: normal; auscultación: hipofonésis en tercio inferior de CPD. Resto de aparatos y sistemas sin alteraciones importantes. Como dato llamativo encontramos un índice de masa corporal: 18 kg/m<sup>2</sup> (delgada). En los exámenes de laboratorio se encontró en el hemograma: leucocitos ligera con predominio de neutrófilos, eritrosedimentación: 38.0 mm/h; mantoux no reactivo, V.D.R.L.: no reactivo, V.I.H.: negativo. La espirometría forzada reportó un patrón restrictivo ligero.

En la tomografía axial computarizada de alta resolución (TACAR), se observan múltiples lesiones de consolidación con atelectasia y presencia de broncograma aéreo en el lóbulo inferior derecho además de una evidente supuración pulmonar. Esta masa se ubica en íntima relación con el plano pleuro – costal (fig. 2).



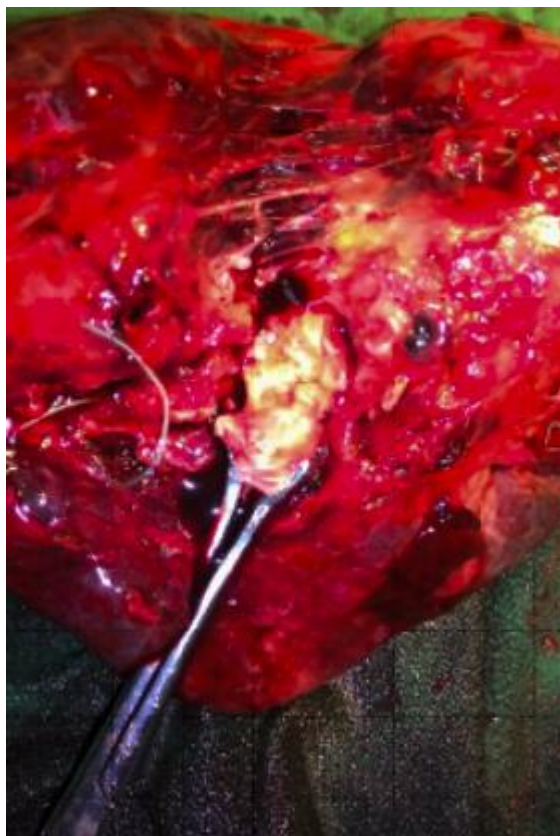
**Fig. 2** - En la imagen A se observa una opacidad parahiliar derecha asociada a banda atelectásica en el LID. En la imagen B se aprecia proceso de consolidación de aspecto inflamatorio en los segmentos basales, de proyección posterior en el lóbulo inferior derecho que hace contacto con el plano pleural posterobasal y eleva la cúpula diafragmática ipsilateral. La imagen C muestra proceso supurativo pulmonar con áreas de neumonitis perilesional en íntima relación con el plano pleurocostal. Por último, en la imagen D se evidencia que la lesión presenta broncograma aéreo y bronquiectasias de tipo cilíndrico con engrosamiento a nivel peribronquial y perivascular.

Se realizó broncoscopia la cual informa como impresión diagnóstica una malformación congénita, posible aplasia bronquial segmentaria (fig. 3). Se recogieron muestras de lavado bronquial que fueron negativas para estudio citológico, B.A.A.R., bacteriológico y micológico.



**Fig. 3** - En la imagen A, la flecha muestra el segmento B4 ocluido. En la imagen B, la flecha muestra los basales ocluidos o ausentes. En la imagen C, la flecha muestra una oclusión del segmento B4 y disminución de la luz del B5 por engrosamiento de la pared. En la imagen D la flecha muestra un pequeño orificio donde debe estar el segmento B3.

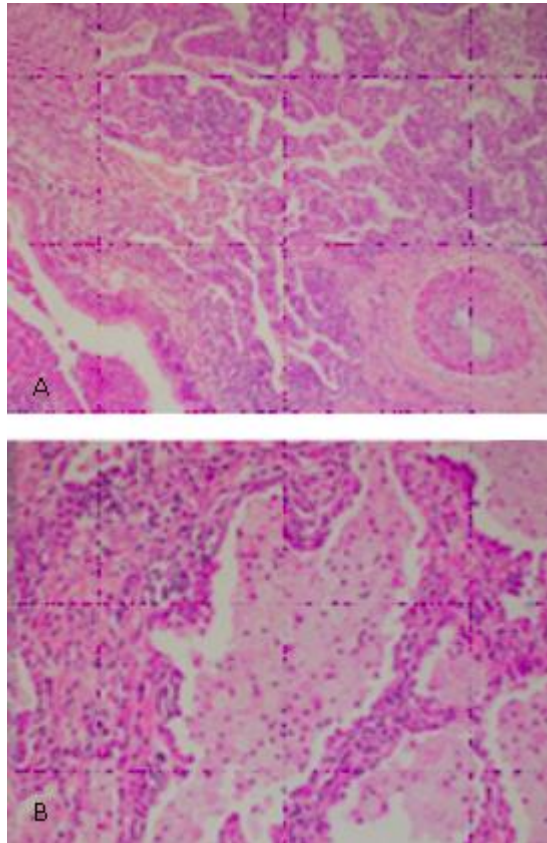
Se establecen como diagnósticos iniciales: malformación congénita en estudio (atresia bronquial congénita *vs* secuestro pulmonar) o posible supuración pulmonar en lóbulo inferior derecho. Se interconsulta con el servicio de cirugía de tórax y la paciente es llevada al salón de operaciones para realizar una toracotomía derecha con posible lobectomía del lóbulo inferior ipsilateral. (fig. 4).



**Fig. 4** - Lóbulo hepaticado con cambios de coloración en la superficie, consistencia renitente y friable con pequeña lesión de pleura visceral y salida de líquido purulento.

La pieza obtenida en el acto quirúrgico se llevó a anatomía patológica. Se describió a nivel macroscópico una masa con cambios de coloración y friable. Microscópicamente se describe (fig. 5). El diagnóstico definitivo fue secuestro pulmonar intralobar del lóbulo inferior derecho.





**Fig 5** - Secuestro pulmonar intralobar del lóbulo inferior derecho.

A: Se observa el campo lleno de polimorfos y restos celulares, vasoortelial de mediano calibre que es reflejo de la circulación anómala.

B: Engrosamiento por la fibrosis e hiperhiperplasia de los neumocitos.

La paciente tuvo una evolución favorable en el posoperatorio, se le administró antibiótico y fue dada de alta al décimo quinto día.

## Discusión

En 1777 *Huber* describió arterias anómalas sistémicas que iban al pulmón. El término “secuestro” no fue acuñado hasta 1946 cuando *Pryce* describió el primer SIL y en 1974 *Sade* habló del espectro del secuestro pulmonar para referirse a la variedad de formas de presentación de esta patología.<sup>(4,5)</sup>

El SIL tiene una distribución similar entre géneros y es diagnosticada por lo general luego de los 20 años de edad.<sup>(6)</sup> La razón por la que se desarrolla esta malformación aún no se encuentra clara. Existen hipótesis de que su origen se encuentra en el periodo embrionario, antes de la separación de la circulación aórtica y pulmonar.<sup>(7)</sup> Típicamente el secuestro pulmonar se identifica luego de una infección respiratoria aguda o por presentación de

síntomas cardiacos como disnea, cianosis o hemoptisis y que se encuentran asociados a derivación de izquierda a derecha, además de un historial de infecciones respiratorias a repetición.<sup>(7)</sup>

El diagnóstico del SP inicial es con una radiografía de tórax en la cual suele presentarse como una opacidad homogénea o heterogénea tipo condensación a nivel del lóbulo afectado, que puede simular una neumopatía inflamatoria o presentarse como cavidades con o sin nivel hidroaéreo. La tomografía axial computarizada (TAC) puede mostrar el área del secuestro y la angiotomografía es el método diagnóstico radiológico más efectivo, la cual permite observar la irrigación vascular anómala en 70 % a 80 % de los casos, siendo este el estudio de primera línea para el diagnóstico. En 30 % a 35 % de los casos el diagnóstico definitivo es quirúrgico mediante estudios patológicos de la pieza extraída.<sup>(8)</sup>

La TAC es el principal examen complementario de imagen y se emplea para identificar las características anormales del parénquima, se puede precisar de igual manera el suministro de sangre anómalo en el pulmón; además se puede realizar ecografía Doppler para identificar la arteria anómala aferente.<sup>(9)</sup> El tratamiento consiste en la resección quirúrgica del parénquima pulmonar secuestrado (lobectomía). En el caso del SIL, los cambios inflamatorios resultantes de infecciones previas pueden complicar el procedimiento. El examen histopatológico del tejido pulmonar es el que da el diagnóstico definitivo.<sup>(7)</sup> En este caso clínico se evidencia la dificultad para realizar el diagnóstico del secuestro pulmonar a pesar de los estudios radiológicos disponibles y el conocimiento más profundo de esta enfermedad en los últimos años. Por condiciones de la paciente y sintomatología como la disnea, infecciones recurrentes, riesgo de sobreinfección por patógenos oportunistas y posible formación de comunicaciones arteriovenosas, se procedió a realizar lobectomía diagnóstica y terapéutica. La pieza quirúrgica se estudió por anatomía patológica y se obtuvo el diagnóstico definitivo. Cabe recalcar que la literatura y los estudios publicados en los últimos 15 años indican que el SIL es más común en lóbulo inferior izquierdo.<sup>(10,11)</sup>

### Responsabilidades éticas

Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.



## Referencias bibliográficas

1. Xin Li, Hui Du, Mujeeb ur Rehman, Ming Dong, Minghui Liu, Hongyu Liu, *et al.* Intralobar pulmonary sequestration originating from the intercostal arteries treated with surgical resection. *Thoracic Cancer*. 2018;877-80.
2. Álvarez J, Casan P, Rodríguez F, Rodríguez J, Villena V. *Neumología Clínica*. 2 ediciones. ELSEVIER. 2017;835-36.
3. Riley JS, Urwin JW, Oliver ER, Coleman BG, Khalek N, Moldenhauer JS, *et al.* Prenatal growth characteristics and pre/postnatal management of bronchopulmonary sequestrations. *J Pediatr Surg*. 2018;53(2):265-69.
4. 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.
5. Sade RM, Clouse M, Ellis FH. The Spectrum of Pulmonary Sequestration. *Ann. Thorac. Surg*. 1974;18:644-58.
6. Holstein P, Hjelm E. Bronchopulmonary Sequestration. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg*. 1973;65:462-66.
7. Sotto Mayor J, Rocha D, Esperanca S. Intralobar pulmonary sequestration: diagnostic Expertise. *BMJ Case Rep*. 2015 doi: <https://doi.org/10.1136/bcr-2015-212384>
8. Montjoy C, Hadique S, Graeber G, Ghamande S. Intralobar bronchopulmonary sequestra in adults over age 50: case series and review. *W V Med J*. 2012;108(5):8-13.
9. Yue SW, Guo H, Zhang YG, Gao JB, Ma XX, Ding PX. The clinical value of computer tomographic angiography for the diagnosis and therapeutic planning of patients with pulmonary sequestration. *Eur J Cardiothorac Surg*. 2013;43(5):946-51.
10. Grainger Allison's. *Diagnostic Radiology: A Text book of Medical Imaging*, 4th ed., 2001 Churchill Livingstone, Inc. pp 654-55.
11. Zapata González R, Naranjo Salazar C, Méndez Giraldo M, Vélez Castaño P, Montoya Medina C, Roncancio Villamil G, *et al.* Secuestro pulmonar en adultos: reporte de tres casos y revisión de la literatura. *Rev CES Med*. 2018;32(2):150-58.

## Conflicto de intereses

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.

### Contribuciones de los autores

*Denenke Basanta Bergolla:* Encargada de la elaboración, supervisión, control, discusión y revisión final del artículo científico. Revisó y aprobó la versión final del documento.

*Pablo Salinas Vázquez:* Encargado de la recolección de datos clínicos, introducción, búsqueda científica y estructura del artículo. Revisó y aprobó la versión final del documento.

*Junior Fernández Maradiaga:* Recolección de imágenes, datos epidemiológicos y traducción. Revisó y aprobó la versión final del documento.