

Hidrotórax fetal secundario a secuestro pulmonar intralobar: terapia fetal mediante escleroterapia percutánea bajo guía ecográfica

 Daniel Márquez-Contreras,¹  Kenny Araujo-Vargas,¹  Luisa León-Villavicencio,¹
 Juan Andrés Pérez-Wulff.¹

RESUMEN

El secuestro pulmonar es una masa de tejido pulmonar no funcionante que no se comunica con el árbol traqueobronquial y tiene un suministro sanguíneo aberrante que proviene de la circulación sistémica. Se presenta el caso de una gestante de 34 años de edad, con embarazo de 25 semanas, con diagnóstico antenatal de secuestro pulmonar con derrame pleural, compresión mediastinal, dextroposición cardíaca y polihidramnios. Se realizó intervención fetal mediante escleroterapia percutánea, con éxito. Luego de 4 semanas, se evidenció ausencia de derrame pleural, corazón en posición normal. El embarazo culminó de forma satisfactoria con un recién nacido en estables condiciones. El secuestro pulmonar puede presentar una rápida evolución de crecimiento de la masa, que produce compresión mediastinal, hidrops fetal y polihidramnios, lo cual produce aproximadamente 100 % de mortalidad fetal. Es importante conocer todas las opciones terapéuticas disponibles, entre ellas la escleroterapia percutánea bajo guía ecográfica, para mejorar el pronóstico fetal.

Palabras clave: Secuestro pulmonar, Escleroterapia, Terapia fetal.

Isthmocele. Case report

SUMMARY

Pulmonary sequestration is a mass of non-functioning lung tissue that does not communicate with the tracheobronchial tree and has an aberrant blood supply that comes from the systemic circulation. We present the case of a 34-year-old pregnant woman, with a pregnancy of 25 weeks, with an antenatal diagnosis of pulmonary sequestration with pleural effusion, mediastinal compression, cardiac dextroposition and polyhydramnios. Fetal intervention was performed using percutaneous sclerotherapy, successfully. After 4 weeks, there was evidence of absence of pleural effusion, heart in normal position. The pregnancy ended satisfactorily with a newborn in stable condition. Pulmonary sequestration can present a rapid evolution of mass growth, which produces mediastinal compression, fetal hydrops and polyhydramnios, which produces approximately 100% fetal mortality. It is important to know all available therapeutic options, including percutaneous sclerotherapy under ultrasound guidance, to improve fetal prognosis.

Keywords: Bronchopulmonary sequestration, Percutaneous ultrasound-guided sclerotherapy, Fetal therapy.

INTRODUCCIÓN

El secuestro pulmonar es una masa de tejido pulmonar no funcionante que no se comunica con el árbol traqueobronquial y tiene un suministro sanguíneo

aberrante que proviene de la circulación sistémica (1). Este tipo de lesión puede clasificarse en intralobar o extralobar, el secuestro pulmonar intralobar representa el 75 % de los casos y el extralobar representa el 25 % (2). El secuestro pulmonar representa entre el 1 % y el 6 % de las lesiones torácicas, pero a pesar de ser una rara anomalía, es preciso tenerla en cuenta en todo feto con una masa sólida torácica, especialmente si tiene forma triangular y está en el lóbulo inferior (3). El pronóstico perinatal depende de la presencia de *hidrops*, derrame pleural y la hipoplasia pulmonar (4). En estos casos es necesario realizar técnicas invasivas

¹Especialistas en Obstetricia y Ginecología, y Perinatología. Hospital Universitario de Caracas. Universidad Central de Venezuela. Correo de correspondencia: danielmarquez33@hotmail.com

Forma de citar este artículo: Márquez-Contreras D, Araujo-Vargas K, León-Villavicencio L, Pérez-Wulff J. Hidrotórax fetal secundario a secuestro pulmonar intralobar: terapia fetal mediante escleroterapia percutánea bajo guía ecográfica. Rev Obstet Ginecol Venez. 2022; 82(2): 275-279. https://doi.org/10.51288/00820216

para disminuir la mortalidad perinatal. A continuación se presenta un caso de secuestro pulmonar y terapia fetal.

CASO CLÍNICO

Paciente de 34 años de edad, II gestas, I cesárea, con embarazo de 25 semanas por fecha de última menstruación, sin antecedentes familiares ni personales de importancia, quien fue referida a la Unidad de Perinatología del Hospital Universitario de Caracas en vista de presentar patología pulmonar a precisar. A la evaluación ecográfica se evidenció: feto único de sexo masculino quien a nivel torácico presentaba derrame pleural izquierdo extenso, con una masa ecogénica de aspecto sólido de gran tamaño, con diámetro de 40 x 41 mm (Figura 1), al *doppler* color se identifica que la misma se encuentra vascularizada con un vaso aberrante proveniente de la arteria aorta (Figura 2), además presenta desplazamiento mediastinal y corazón en dextroposición, los hallazgos eran sugestivos de patología pulmonar fetal: secuestro pulmonar intralobar, adicionalmente polihidramnios (índice



Figura 1. Corte axial de tórax fetal donde se evidencia masa a nivel de hemitórax izquierdo.

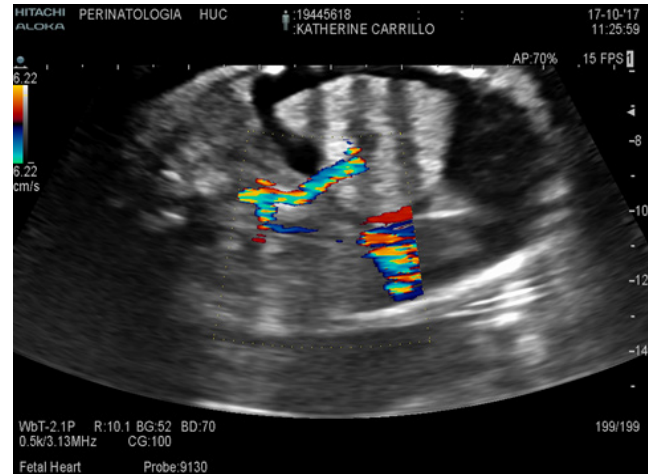


Figura 2. Vaso aberrante proveniente de la aorta.

de líquido amniótico: 388 mm) y arteria umbilical única. En vista de los hallazgos antes mencionados, que aumentan el riesgo de morbimortalidad perinatal se planteó realizar escleroterapia percutánea. Se solicitaron exámenes de laboratorio pertinentes para poder efectuar el procedimiento; el mismo se practicó a las 30 semanas de gestación; bajo guía ecográfica se realizó toracocentesis con aguja de 20 G, luego se procedió a introducir la aguja a nivel del vaso nutricio que irriga la masa y se instiló 1 cc de polidocanol al 1 % para esclerosar el vaso (Figura 3). Posteriormente se hizo drenaje del líquido pleural en su totalidad, extrayendo 85 cc del mismo, el corazón fetal retornó a su posición normal, luego se realizó amniodrenaje de 1500 cc de líquido amniótico. Se culminó el procedimiento con éxito y se enviaron muestras para estudio de cariotipo fetal y citoquímico de líquido pleural, cuyos resultados fueron normales, cariotipo fetal 46 XY. Luego de 4 semanas del procedimiento, es decir a las 34 semanas de gestación, se constató la ausencia de derrame pleural, el corazón fetal estaba en posición normal, con expansión significativa del pulmón izquierdo y la masa correspondiente al secuestro pulmonar con disminución de su tamaño, con medidas de 22 x 24 x 20 mm y con índice de líquido amniótico dentro de límites normales (Figura 4).

*HIDROTÓRAX FETAL SECUNDARIO A SECUESTRO PULMONAR INTRALOBAR:
TERAPIA FETAL MEDIANTE ESCLEROTERAPIA PERCUTÁNEA BAJO GUÍA ECOGRÁFICA*

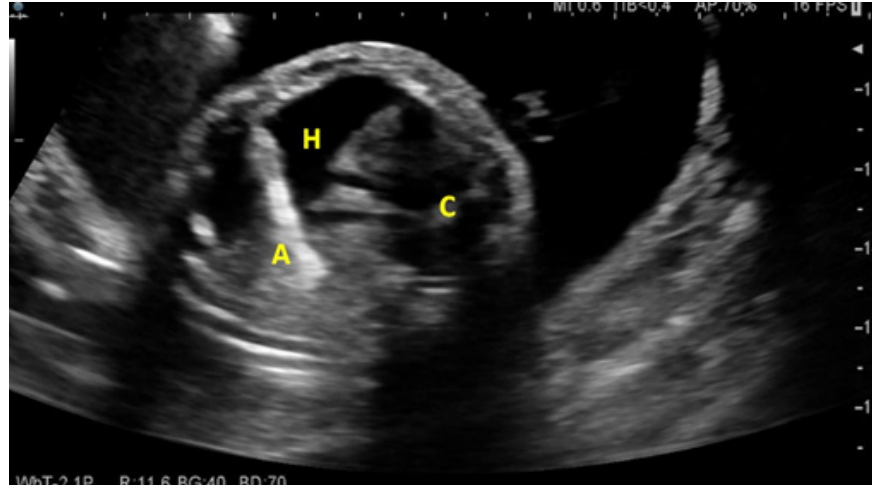


Figura 3. Hidrotórax fetal (H) con dextroposición cardíaca (C). Nótese la imagen refringente que representa la aguja dentro de la masa pulmonar (A), se ubica el vaso nutricional con *doppler* y se inyecta el polidocanol.

Se mantuvo evaluación semanal y a las 39 semanas se realizó cesárea segmentaria obteniendo recién nacido masculino de 3200 gramos, quien lloró y respiró al nacer y no ameritó ingreso a unidad de terapia intensiva neonatal. Posterior al nacimiento se realizó tomografía

con contraste, corroborando los hallazgos antenatales. Actualmente el lactante cuenta con 3 años de edad, asintomático desde el punto de vista respiratorio y con manejo expectante por parte de servicio de cirugía pediátrica.

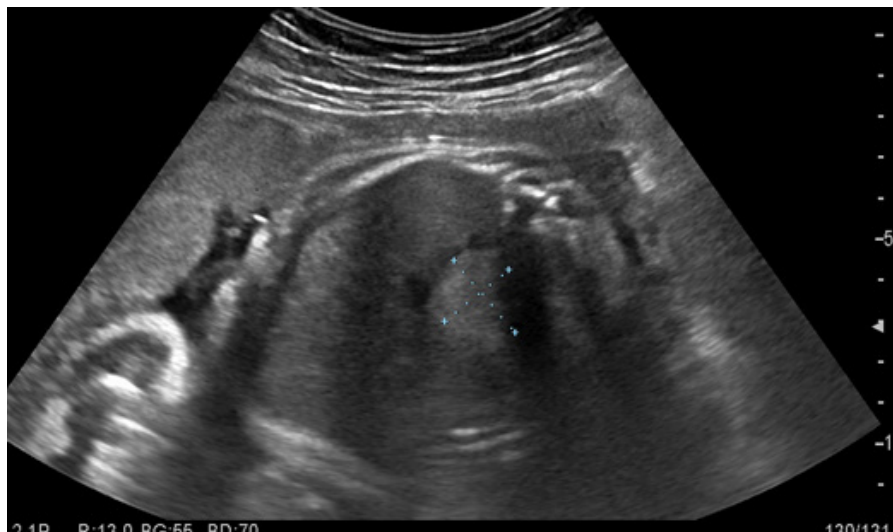


Figura 4. Evaluación a las 34 semanas de gestación, evidenciándose disminución del tamaño de la masa, ausencia de derrame pleural. (4 semanas después de realizar la escleroterapia)

DISCUSIÓN

El secuestro pulmonar es de mal pronóstico perinatal cuando se diagnostica antes de las 26 semanas y está acompañado de compresión mediastinal, polihidramnios e *hidrops* fetal (5), para mejorar el pronóstico se debe considerar utilizar técnicas de intervención fetal (6). En casos de secuestro pulmonar, se han utilizado diversas técnicas como la derivación tóracoamniótica (7), la administración fetal de terapia con furosemida y digoxina (8), la inyección de alcohol absoluto en el vaso nutricio más colocación de derivación tóracoamniótica (9), la ablación láser del vaso nutricio (6) y la escleroterapia percutánea con guía ecográfica (10). En este caso se decidió utilizar la técnica con escleroterapia en vista de tener experiencia satisfactoria en la institución, además que es una técnica bastante accesible cuando no se dispone de equipos de cirugía fetal o los mismos son poco accesibles, por lo que es una opción en aquellos sitios donde no se disponga de los mismos; este tipo de técnica también se ha utilizado en otras patologías pulmonares como en la enfermedad adenomatoidea quística (11) obteniendo buenos resultados.

El secuestro pulmonar es una patología infrecuente, se presenta en aproximadamente 1 por cada 5000 embarazos, la mayoría de los casos cursan sin ningún tipo de complicación durante la gestación (12), pero en ocasiones hay una rápida evolución del crecimiento de la masa, que produce compresión mediastinal, *hidrops* fetal y polihidramnios, lo cual incrementa aproximadamente al 100 % la probabilidad de muerte perinatal (13).

Reciente se ha sugerido la estandarización de un protocolo de tratamiento para patologías pulmonares como la malformación adenomatoidea quística y el secuestro pulmonar (13, 14), dicho protocolo consiste en dos fases: primera fase: denominada conservadora, en la cual se le otorga al feto como paciente el uso de esteroides administrados vía materna, betametasona 12 mg vía intramuscular profunda, orden día, por 2

dos; se hace seguimiento del mismo mediante los índices de valoración de pulmón sano y, posterior a ello, de no lograr resultados favorables, se cambia a la segunda fase definitiva, la cual tendrá dos vertientes, dependiendo de si se cuenta con el recurso de una unidad de terapia fetal.

La segunda fase consiste en lo siguiente: a) si no se cuenta con unidad de terapia fetal, se realiza escleroterapia percutánea con polidocanol al 3 % en la unidad de medicina materno-fetal; b) si se cuenta con unidad de cirugía fetal, se realiza ablación láser del vaso nutricio de la masa pulmonar.

De esta forma, se logra la unificación de conductas, estandarizándose un protocolo de fácil manejo y aplicación, reproducible como pauta a nivel mundial, para dichas patologías (14). Es importante conocer todas las opciones terapéuticas disponibles para mejorar el pronóstico fetal y dentro de estas técnicas está la escleroterapia percutánea bajo guía ecográfica.

Sin conflictos de interés.

REFERENCIAS

1. Wani SA, Mufti GN, Bhat NA, Baba AA. Pulmonary Sequestration: Early Diagnosis and Management. *Case Rep Pediatr.* 2015; 2015:454860. doi: 10.1155/2015/454860.
2. Ruoti-Cosp M, Galeano M, De-Agustín S, González L, Fabre E. Secuestro pulmonar infradiafragmático asociado a malformación adenomatoidea quística congénita. *Mem Inst Investig Cienc Salud [Internet].* 2009 [consultado 20 de julio de 2021]; 7(1):54-60 Disponible en: <http://scielo.iics.una.py/pdf/iics/v7n1/v7n1a09.pdf>
3. Partal A, Perez S, Mena T, Pallares M, Maldonado V, Torres J. Secuestro broncopulmonar fetal con resolución espontánea intraútero. *Prog Obstet Ginecol.* 2012; 55(5):235—238. doi:10.1016/j.pog.2012.01.008.

*HIDROTÓRAX FETAL SECUNDARIO A SECUESTRO PULMONAR INTRALOBAR:
TERAPIA FETAL MEDIANTE ESCLEROTERAPIA PERCUTÁNEA BAJO GUÍA ECOGRÁFICA*

4. Cruz-Martínez R, Méndez A, Dueñas-Riaño J, Ordorica-Flores R, Nieto-Zermeño J, Malagón-Salazar P, *et al.* Fetal laser surgery prevents fetal death and avoids the need for neonatal sequestrectomy in cases with bronchopulmonary sequestration. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2015; 46(5):627-628. doi: 10.1002/uog.14921.
5. Weiner C, Varner M, Pringle K, Hein H, Williamson R, Smith WL. Antenatal diagnosis and palliative treatment of nonimmune hydrops fetalis secondary to pulmonary extralobar sequestration. *Obstet Gynecol.* 1986; 68(2):275-280.
6. Cruz-Martínez R, Martínez-Rodríguez M, Bermúdez-Rojas M, Magaña-Abarca C, Narvaez-Dominguez V, Rojas-Macedo A, *et al.* Fetal laser ablation of feeding artery of cystic lung lesions with systemic arterial blood supply. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2017; 49(6):744-750. doi: 10.1002/uog.16011.
7. Salomon LJ, Audibert F, Dommergues M, Vial M, Frydman R. Fetal thoracoamniotic shunting as the only treatment for pulmonary sequestration with hydrops: favorable long-term outcome without postnatal surgery. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2003; 21(3):299-301. doi: 10.1002/uog.76.
8. Anandakumar C, Biswas A, Chua TM, Choolani M, Chia D, Wong YC, *et al.* Direct intrauterine fetal therapy in a case of bronchopulmonary sequestration associated with non-immune hydrops fetalis. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 1999; 13(4):263-265. doi: 10.1046/j.1469-0705.1999.13040263.x.
9. Nicolini U, Cerri V, Groli C, Poblete A, Mauro F. A new approach to prenatal treatment of extralobar pulmonary sequestration. *Prenat Diagn.* 2000; 20(9):758-760. doi: [https://doi.org/10.1002/1097-0223\(200009\)20:9<758::AID-PD899>3.0.CO;2-A](https://doi.org/10.1002/1097-0223(200009)20:9<758::AID-PD899>3.0.CO;2-A).
10. Bermúdez C, Pérez-Wulff J, Bufalino G, Sosa C, Gómez L, Quintero RA. Percutaneous ultrasound-guided sclerotherapy for complicated fetal intralobar bronchopulmonary sequestration. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2007; 29(5):586-589. doi: 10.1002/uog.3944.
11. Bermúdez C, Pérez-Wulff J, Díaz R, Posso A. Diagnóstico y tratamiento prenatal de mínima invasión. *Rev Latin Perinat [Internet].* 2014 [consultado 22 de agosto de 2021]; 17(1):54-86. Disponible en: http://www.revperinatologia.com/images/9_Diagn%C3%B3stico_y_tratamiento_prenatal_de_m%C3%ADnima_invasi%C3%B3n.compressed.pdf
12. Cruz-Martínez R, Nieto-Castro B, Martínez-Rodríguez M, Gámez-Varela A, Ahumada-Angulo E, Luna-García J, *et al.* Thoracic Changes after Full Laser Ablation of the Feeding Artery in Fetuses with Bronchopulmonary Sequestration. *Fetal Diagn Ther.* 2018; 44(3):166-172. doi: 10.1159/000481170.
13. Peranteau WH, Boelig MM, Khalek N, Moldenhauer JS, Martinez-Poyer J, Hedrick HL, *et al.* Effect of single and multiple courses of maternal betamethasone on prenatal congenital lung lesion growth and fetal survival. *J Pediatr Surg.* 2016 Jan;51(1):28-32. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2015.10.018.
14. Diaz-Primera R, Gil-Guevara E, Sánchez-Jiménez R, Bermúdez C. Cirugía fetal en tumores pulmonares mediante escleroterapia. *Rev Peru Ginecol Obstet.* 2018; 64(4):647-654. doi: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v64i2135>.

Recibido: 28 de septiembre de 2021

Aprobado: 24 de marzo de 2022