

## Secuestro pulmonar intralobar

### Intralobar Pulmonary Sequestration

Edelberto Fuentes Valdés<sup>1\*</sup> <https://orcid.org/0000-0001-9031-7180>

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

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

#### RESUMEN

**Introducción:** El secuestro pulmonar está representado por masas de tejido pulmonar displásico, no funcionante, sin comunicación con el árbol bronquial.

**Objetivo:** Presentar tres casos de secuestro pulmonar intralobar tratados por el autor.

**Caso clínico:** Se presentan tres pacientes tratados entre 2013 y 2018 con diagnóstico de secuestro pulmonar. Dos fueron del sexo masculino (44 y 60 años de edad) y una del femenino (20 años de edad). Los síntomas fueron dolor torácico (1) y cuadro de infección pulmonar grave (2). En dos enfermos el secuestro se localizó en el lóbulo inferior derecho y en uno en el inferior izquierdo. Las operaciones fueron lobectomías inferiores derecha (1) e izquierda (1) y bilobectomía inferior y media derechas por afectación del lóbulo medio. Dos tuvieron una evolución satisfactoria y uno presentó un empiema pleural que resolvió con tratamiento antibiótico.

**Conclusiones:** Los secuestros pulmonares son raros y los síntomas suelen asociarse con infección pulmonar. En la mayoría de los casos es necesario realizar una lobectomía. La evolución postoperatoria suele ser buena.

**Palabras clave:** secuestro; pulmonar; secuestro pulmonar; intralobar.

#### ABSTRACT

**Introduction:** Pulmonary sequestration is characterized by masses of dysplastic, nonfunctioning lung tissue, without any communication with the bronchial tree.

**Objective:** To present three cases of intralobar pulmonary sequestration treated by the author.

**Clinical case:** The respective cases are presented of three patients with a diagnosis of pulmonary sequestration treated between 2013 and 2018. Two were male (44 and 60 years old, respectively) and one was female (20 years old). Their symptoms were chest pain (1) and severe lung infection (2). In two patients, the sequestration was located in the lower right lobe, while, in one, it was in the lower left lobe. The operations were right (1) and left (1) lower lobectomies and right lower and middle bilobectomy due to middle lobe involvement. Two had a satisfactory evolution, while one presented a pleural empyema healed with antibiotic treatment.

**Conclusions:** Pulmonary sequestration is rare and their symptoms are usually associated with pulmonary infection. In most cases, a lobectomy is necessary. The postoperative evolution is usually good.

**Keywords:** sequestration; pulmonary; pulmonary sequestration; intralobar.

Recibido: 16/12/2020

Aceptado: 16/01/2021

## Introducción

El secuestro pulmonar (SP) está representado por masas de tejido pulmonar displásico, no funcionante, que no tienen comunicación con el árbol bronquial<sup>(1,2)</sup> y, por lo regular, reciben la irrigación sanguínea de arterias sistémicas.<sup>(2)</sup> mientras que suelen drenar hacia la vena pulmonar inferior. Fisiológicamente, este patrón de drenaje venoso crea un cortocircuito inusual izquierda-izquierda porque la sangre venosa entra a la aurícula izquierda.<sup>(3)</sup>

Lo más frecuente es que la irrigación se origine de la aorta torácica o abdominal. Sin embargo, se han documentado otros vasos arteriales como arteria renal derecha,<sup>(2)</sup> intercostales, coronarias, gástrica izquierda, subclavia y pulmonar entre otras.<sup>(4)</sup> Es una lesión rara que ocurre entre el 0,15 % y el 6,4 % de todas las malformaciones congénitas de los pulmones.<sup>(5)</sup>

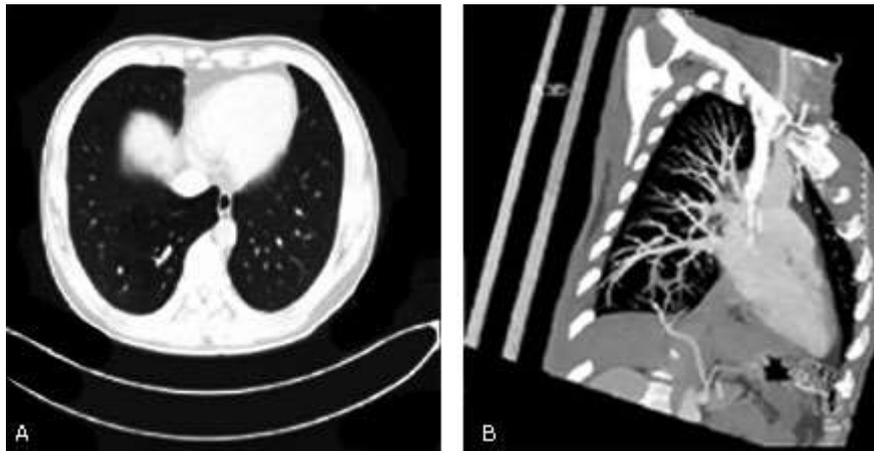
La enfermedad fue descrita en 1946 por *Pryce*,<sup>(6)</sup> quien la clasificó en tres tipos, en el primero de los cuales no existía parénquima pulmonar anómalo. Por este motivo, más tarde se le conoció como “irrigación sistémica arterial anómala para el pulmón normal) para diferenciarlo del secuestro verdadero.

Se clasifica en dos tipos: intralobar y extralobar. El primero está rodeado por tejido pulmonar normal y pleura mientras el extralobar tiene su propia pleura.<sup>(3)</sup>

El secuestro intralobar (SI) es más frecuente en niños mayores y adolescentes y representa alrededor del 75 % de los casos.

El secuestro extralobar (SE) suele manifestarse en la infancia temprana, con síntomas como insuficiencia respiratoria, cianosis e infección. El SI, por lo regular se presenta tarde en la niñez o en adultos y se caracteriza por síntomas como neumonía u otras infecciones pulmonares recidivantes generalmente asociadas a tos, esputos, fiebre hemoptisis y dolor torácico.<sup>(7,8)</sup> Un grupo de pacientes puede estar asintomático.<sup>(9)</sup> La tomografía axial computarizada (TAC) contrastada es la técnica de elección para el diagnóstico, por su capacidad de demostrar el origen de la irrigación del secuestro (Fig. 1).<sup>(1)</sup>

El objetivo del artículo fue presentar tres casos de secuestro pulmonar intralobar tratados por el autor.



Fuente: Tomado de, Qi W, Zhao J, Shi G, Yang F. Intralobar pulmonary sequestration displayed as localized emphysema on computed tomography image. *Journal of Cardiothoracic Surgery*. 2017;12:83.

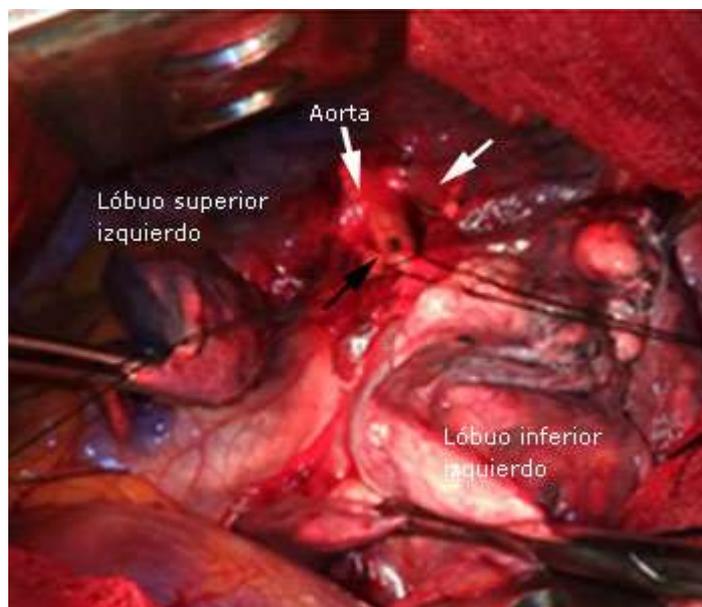
**Fig. 1-** Tomografía axial computarizada. A). Enfisema localizado en el lóbulo inferior derecho y el vaso nutricional aberrante (flecha) localizado en el tejido pulmonar anómalo. B). Se muestra la arteria nutricional (flecha) al entrar en el lóbulo pulmonar inferior derecho.

## Presentación de casos

Se presentan tres pacientes tratados entre 2013 y 2018 con diagnóstico de SP. El primer paciente, masculino, de 44 años fue operado en 2013. Presentó un cuadro de infección pulmonar grave con fiebre alta, dolor torácico y tos. Se impuso tratamiento antibiótico y nutricional. Con la mejoría del proceso infeccioso se decidió la intervención quirúrgica a través de una toracotomía posterolateral derecha. Se realizó la lobectomía inferior derecha. El SI se encontraba en el segmento posterior. El período postoperatorio transcurrió sin ningún evento adverso. En el seguimiento a los seis meses se encontraba asintomático y con su vida normal.

El paciente, masculino, de edad 60 años, operado en 2017, fue evaluado por dolor torácico izquierdo. Ingresó en otro centro, donde la radiografía del tórax informó que se trataba de una neumonía. Una vez asintomático fue remitido a nuestro hospital. La TAC demostró una masa polilobulada en el segmento posterior del lóbulo inferior izquierdo. Se realizó la lobectomía inferior izquierda a través de

una toracotomía vertical. Se encontraron tres arterias de mediano tamaño y una muy pequeña que se ligó junto con una de las otras (Fig. 2).



**Fig. 2-** La flecha blanca indica dos arterias nutricias del secuestro, ligadas y seccionadas y, la negra, una tercera arteria más grande, todas originadas en la aorta.

La evolución postoperatoria fue satisfactoria. Al año de la operación se mantenía asintomático e integrado a la vida normal.

La paciente de 20 años, operada en 2019, ingresó con un cuadro infeccioso grave. La radiografía del tórax informó que se trataba de una neumonía basal derecha. La TAC señaló que se trataba de una displasia pulmonar infectada. Con el tratamiento antibiótico y el apoyo nutricional presentó mejoría significativa. La operación se indicó con el diagnóstico de una infección necrotizante. Se realizó bilobectomía inferior y media por estar afectado secundariamente este último lóbulo. En el postoperatorio presentó fiebre un derrame pleural multiloculado (imagen) que se diagnosticó como empiema pleural postoperatorio (Fig. 3). El tratamiento antibiótico fue suficiente. A los 6 meses se encontraba asintomática y con una vida normal.



**Fig. 3-** Radiografía postoperatoria que muestra varios niveles hidroaéreos hacia la base, compatibles con empiema postoperatorio, resuelto con tratamiento antibiótico.

## Discusión

El secuestro intralobar ocurre entre el 75 % y el 85 % del total, con el lado izquierdo afectado entre el 55 % y el 60 % de los casos. El secuestro extralobar predomina en los hombres (80 %).<sup>(10)</sup>

La infección respiratoria recurrente en los secuestros intralobares producen los síntomas más frecuentes asociados al descubrimiento de la lesión como ocurrió en los pacientes motivo del artículo. Se reconoce que síntomas como dolor torácico, fiebre intermitente, tos de duración variable, pueden estar presentes incluso hasta 20 años antes del diagnóstico.<sup>(2)</sup> También se puede presentar en forma de hemorragia intratorácica<sup>(11)</sup> o hemoptisis.<sup>(8)</sup> En un grupo de enfermos el diagnóstico puede ser tardío, como se demostró en dos de nuestros pacientes con edades de 44 y 62 años. Otros han informado pacientes con edad superiores a los 30 años.<sup>(9)</sup>

El diagnóstico del SI se realiza mediante estudios imaginológicos, con el objetivo de identificar la arteria aberrante para guiar la resección quirúrgica.<sup>(3)</sup> La radiografía simple del tórax puede mostrar una radioopacidad con bordes redondeados. La angioTAC es la modalidad diagnóstica no invasiva de elección,

pues puede identificar el parénquima pulmonar anómalo y el 100 % de las arterias aberrantes y del drenaje venoso,<sup>(2,12)</sup> hallazgos importantes para establecer las estrategias quirúrgicas.<sup>(12)</sup>

Long y otros<sup>(12)</sup> encontraron que el 70 % de los SIs pueden estar localizados en el lóbulo inferior izquierdo y el resto (30 %) en el lóbulo inferior derecho. Si bien, con cierta frecuencia, el secuestro está irrigado por una arteria simple, se pueden ver múltiples arterias sistémicas que alimentan al tejido aberrante (Fig. 2). Aunque raramente, la irrigación procede de la arteria renal,<sup>(2,13)</sup> aunque puede originarse en arterias intercostales, frénicas, subclavias, pulmonares, coronarias, tronco celíaco y gástrica izquierda. También demuestra las lesiones quísticas multiloculadas y niveles hidroaéreos.

En una revisión de 2625 pacientes en China la TAC demostró las siguientes imágenes: masas, quistes, lesiones cavitarias y neumónicas. El 66,43 % de los SIs se localizaron en el segmento basal posterior izquierdo y en el segmento basal posterior derecho (20,16 %). Los secuestros bilaterales son muy raros. El índice secuestro intrapulmonar/secuestro extrapulmonar fue superior en adultos que en niños ( $p < 0,001$ ).<sup>(4)</sup>

En uno de los casos del autor, el SI se encontraba en el segmento basal posterior derecho y en otro en el segmento basal posterior izquierdo. En el paciente restante no fue posible determinar el segmento por la necrosis asociada a la infección.

Las opciones de tratamiento varían, en dependencia de la historia de síntomas pulmonares, estado de salud actual y los deseos de los pacientes. En el paciente asintomático, estas opciones abarcan desde la resección quirúrgica preventiva, la cirugía torácica videoasistida (CTVA) o embolización, hasta la observación como un enfoque más conservador.<sup>(14)</sup>

La escisión quirúrgica del secuestro es el tratamiento de elección, puesto que la permanencia del tejido anómalo puede ser una fuente de infección. Por otro lado, es de primera importancia la identificación de la fuente de irrigación arterial y del drenaje venoso, preoperatoriamente, para prevenir la lesión de vasos no identificados, que puede llevar a una hemorragia masiva intraoperatoria. La embolización preoperatoria de los vasos anómalos puede ser de utilidad para reducir la pérdida sanguínea. Se recomienda la escisión quirúrgica para los secuestros pulmonares asintomáticos grandes. Los SIs están encerrados en la

pleura visceral normal, lo que hará necesario una lobectomía o segmentectomía para reseccarlos. Los extralobares tienen una cubierta pleural propia y pueden ser extirpados sin pérdida de tejido pulmonar funcionante.

En casos asintomáticos de SIs, la resección quirúrgica es el tratamiento recomendado.<sup>(4)</sup> En pacientes asintomáticos con SIs, el tratamiento ha sido controversial y algunos especialistas dejan elegir al paciente entre observación y resección quirúrgica conservadora. No obstante, existe evidencia de que la resección quirúrgica conservadora puede ser la política deseable en muchos pacientes.<sup>(15)</sup>

Treinta y siete de los pacientes evaluados por *Li* y otros,<sup>(14)</sup> estaban asintomáticos al momento del diagnóstico. De ellos, 17 fueron operados de inmediato mediante CTVA, mientras los 20 restantes eligieron esperar bajo observación. De los 20 que prefirieron la observación, 16 regresaron con síntomas y fueron operados mediante CTVA. Al comparar los resultados de ambos grupos, se demostró que los que prefirieron la observación tuvieron mayores pérdidas sanguíneas, más tiempo con tubos torácicos, mayor estadía hospitalaria y peor función pulmonar, comparados con los pacientes operados inmediatamente tras el diagnóstico. Estos datos sugieren que tanto los pacientes sintomáticos como los asintomáticos con SI tienen mejores resultados si la resección se realiza al momento diagnóstico. En los últimos años, varios autores han practicado la resección del segmento anómalo mediante la cirugía torácica videoasistida,<sup>(4,15)</sup> con mejores resultados a corto plazo que la toracotomía abierta en adultos con SIs.<sup>(16)</sup>

## Consideraciones finales

Los secuestros pulmonares son raros y los síntomas producidos por la infección respiratoria suelen asociarse al descubrimiento de esta lesión. La TAC contrastada es la técnica de elección para el diagnóstico por la posibilidad de demostrar el origen de la irrigación sanguínea. Existe evidencia que apunta hacia el tratamiento quirúrgico temprano tras el diagnóstico. En el paciente asintomático el tratamiento se asocia a sus deseos, desde cirugía convencional, CTVA, embolización, hasta la observación. La lobectomía es el método de tratamiento

más frecuente para el SI. La embolización preoperatoria de los vasos anómalos puede ser de utilidad para reducir la pérdida sanguínea.

### Consentimiento informado

Los pacientes dieron su anuencia para el uso de los datos clínicos y las imágenes, pero sin revelar su identidad.

### Referencias bibliográficas

1. Qi W, Zhao J, Shi G, Yang F. Intralobar pulmonary sequestration displayed as localized emphysema on computed tomography image. *Journal of Cardiothoracic Surgery*. 2017;12:83.
2. Naik S, Ray B, Mohakud S, Deep N. Pulmonary sequestration with aberrant arterial supply from right renal artery. *Lung India*. 2018;35(6):535-6.
3. Abbey P, Das CJ, Pangtey GS, Seith A, Dutta R, Kumar A, et al. Imaging in bronchopulmonary sequestration. *J Med Imaging Radiat Oncol*. 2009;53:22-31.
4. Wei Y, Li F. Pulmonary sequestration: A retrospective analysis of 2625 cases in China. *Eur J Cardiothorac Surg*. 2011;40:e39-42.
5. 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.
6. Pryce DM. Lower accessory pulmonary artery with intralobar sequestration of lung; a report of seven cases. *J Pathol Bacteriol*. 1946;58(3):457-67.
7. Lin CH, Chuang CY, Hsia JY, Lee MC, Shai SE, Yang SS, et al. Pulmonary sequestration - differences in diagnosis and treatment in a single institution. *J Chin Med Assoc* 2013;76:385-9.
8. Alsurain M, Ryu JH. Pulmonary sequestration in adults: a retrospective review of resected and unresected cases. *BMC Pulmon Med*. 2018;18:97.
9. Phelps MC, Sanchirico PJ, Pfeiffer DC. Intralobar pulmonary sequestration: incidental finding in an asymptomatic patient. *Radiology Case Reports*. 2020;25:1891-4.
10. Wong B, Culjar R. Extralobar Pulmonary Sequestration Presenting as Abdominal Pain. *Proceedings of UCLA Health*; 2018.

11. Aryal G, Pathak V. Bronchopulmonary Sequestration Presenting as Recurrent Pneumonia. *WMJ*. 2011;110(5):240-2.
12. Long Q, Zha Y, Yang Z. Evaluation of pulmonary sequestration with multidetector computed tomography angiography in a select cohort of patients: A retrospective study. *Clinics*. 2016;71(7):392-8.
13. Xie D, Xie H, You X, Chen C, Jiang G. Pulmonary sequestration with aberrant arteries arising from the renal artery and the internal thoracic artery. *Ann Thorac Surg*. 2013;96:e131.
14. Li XK, Luo J, Wu WJ, Cong ZZ, Xu Y, Hua TT, et al. Effect of different therapeutic strategies on the clinical outcome of asymptomatic intralobar pulmonary sequestration. *Interact Cardiovasc Thorac Surg*. 2019;29(5):706-13.
15. Litt D, Gandhi S, Bhinder S, Blitz M, McIntyre K. Incidental finding and management of intralobar sequestration of the lung in a 24-year-old man. *Can Respir J*. 2013;20(6):403-5.
16. Li Q, Xie D, Sihoe A, Dai J, Wang H, Gonzalez-Rivas D, et al. Video-assisted thoracic surgery is associated with better short-term outcomes than open thoracotomy in adult patients with intralobar pulmonary sequestration. *Interact Cardiovasc Thorac Surg*. 2018;26(2):284-7.

#### **Conflicto de intereses**

El autor declara no tener conflicto de intereses.