

# Reporte de Caso

## Secuestro pulmonar en embarazo gemelar monocorial-biamniótico

### *Pulmonary sequestration in twin monocorial-biamniótico pregnancy*

PAULA VELÁSQUEZ TRUJILLO<sup>1</sup>, ADRIANA MAYOR BARRERA<sup>2</sup>,  
PAULA RAMÍREZ MUÑOZ<sup>3</sup>, DARÍO SANTACRUZ VARGAS<sup>4</sup>

#### Resumen

El secuestro broncopulmonar (SBP) es una patología asociada a masa congénita de parénquima pulmonar no funcional, separado del árbol tráqueobronquial y alimentado por una arteria sistémica separada, suministro arterial originado típicamente a partir de la aorta descendente y ocasionalmente desde la intercostal, celiaca o arterias esplénicas, con drenaje verboso a través de las venas ácigos o la vena cava inferior y venas pulmonares. En este reporte de caso se describe la presentación de dicha patología en embarazo gemelar monocorial-biamniótico, con hallazgo incidental de Imagen hipoecoica supradiaphragmática derecha, única de diferente densidad del pulmón del feto número 2, presentación de la enfermedad, epidemiología, anatomía y seguimiento imagenológico, describiendo posibles complicaciones y gold standar del diagnóstico, para determinar el compromiso vascular, la arquitectura de la vasculatura y el enfoque terapéutico. El objetivo de este reporte es realizar una revisión de literatura de las principales características del secuestro pulmonar y correlacionar con los hallazgos encontrados en el presente.

**Palabras clave:** *Secuestro broncopulmonar, Embarazo gemelar, Embarazo moocorial-biamnitico, Anatomia pulmonar fetal.*

#### Abstract

Bronchopulmonary sequestration (SBP) is a pathology

associated with a non-functional pulmonary parenchymal congenital mass separated from the tracheobronchial tree and fed by a separate systemic artery, arterial supply typically originating from the descending aorta and occasionally from the intercostal, celiac, or artery Splenic veins with veined drainage through the azygos veins or the inferior vena cava and pulmonary veins. This case report describes the presentation of this pathology in twin-monocorial-biamniotic pregnancy, with an incidental finding of right supradiaphragmatic hypoechoic image, unique of different lung density of the fetus number 2, presentation of the disease, epidemiology, anatomy and imaging follow-up, Describing possible complications and gold standard of the diagnosis, to determine the vascular compromise, the architecture of the vasculature and the therapeutic approach. The objective of this report is to perform a literature review of the main characteristics of pulmonary sequestration and to correlate with the findings found in the present.

**Keywords:** *Bronchopulmonary sequestration, Twin pregnancy, Moo-biannitic pregnancy, Fetal lung anatomy.*

#### Introducción

El secuestro broncopulmonar (SBP) consiste en una masa congénita de parénquima pulmonar no funcional, separado del árbol tráqueobronquial por su propia pleura y alimentado por

\* Unidad de Medicina Materno-Fetal, Clínica Versalles, Cali, Colombia. e-mail: paulis04\_08@hotmail.com

Recibido: abril 16 de 2016

Revisado mayo 19 de 2016

Aceptado: junio 20 de 2016

Como citar: Velásquez Trujillo P, Mayor Barrera A, Ramírez Muñoz P, Santacruz Vargas D. Secuestro pulmonar en embarazo gemelar monocorial-biamniótico. *Rev Colomb Salud Libre*, 2016; 11 (supl): 78-81.

una arteria sistémica separada, suministro arterial originado típicamente a partir de la aorta descendente y ocasionalmente desde la intercostal, celiaca o arterias esplénicas, mientras que el drenaje venoso es a través de las venas ácigos o la vena cava inferior y venas pulmonares<sup>1</sup>. Aunque 70% tienen regresión espontánea *in-utero*, puede progresar en el período intrauterino y solo unos pocos casos se asocian con un rápido crecimiento y/o derrame pleural e *hidrops fetal* (mortalidad entre 90% y 100%)<sup>2</sup>, secundarios a torsión de la masa con alteración u obstrucción del sistema linfático o venoso, volviéndose insuficiente, requiriendo tratamiento intrauterino, caracterizado por oclusión arterial mínimamente invasiva, a partir de cirugía fetal con toracotomía y secuestrectomía<sup>3</sup>, ablación arterial por fotocoagulación o inyección de sustancias esclerosantes o ablación por radiofrecuencia, convirtiéndose en tratamiento definitivo siendo innecesaria la resección postnatal<sup>4</sup>.

La combinación de un suministro de sangre sistémica aberrante y una masa ecogénica de pulmón es patognomónica para el diagnóstico prenatal de secuestro pulmonar<sup>5</sup>. La resonancia magnética nuclear, es el *gold standard* para determinar el compromiso vascular, la arquitectura de la vasculatura y el enfoque terapéutico<sup>6</sup>. Presentamos el caso de un embarazo gemelar en el que uno de los fetos se vio afectado con un secuestro pulmonar<sup>7,8</sup>. El objetivo es realizar una revisión de la literatura y mencionar las principales características del secuestro pulmonar y correlacionar con los hallazgos encontrados en el presente<sup>9,10</sup>.

### Reporte de caso

Gestante tardía de 35 años, G4P2A1, con embarazo gemelar monocorial biamniótico confirmado desde las 6,5 semanas (17/09/2015) de gestación, quien durante una ecografía de control rutinario de detalle anatómico, se evidencia en el feto número 2 una imagen en pulmón izquierdo hipoecoica con diferente

densidad, con vaso y arteria propia sugestiva de secuestro pulmonar. Última ecografía de control con 29 semanas (29 febrero 2016), con fetos creciendo en percentiles adecuados, con discordancia de peso de 9%, y Doppler fetal de cada uno de los fetos normales.

### Estudios de imagen

**Ultrasonografía obstétrica.** Imagen hipoecoica supradiaphragmática derecha, única de diferente densidad del pulmón (Figura 1).



Figura 1. Secuestro pulmonar derecho.

**Ultrasonografía obstétrica.** Vaso nutricio proveniente de aorta (Doppler color) y flujo hepático (Figura 2).

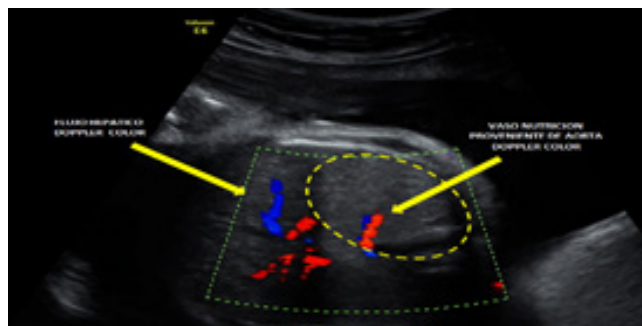


Figura 2. Al doppler color.

**Power Doppler:** Verificación de arteria nutricia pulmonar (Figura 3).

### Discusión

El árbol bronquial se desarrolla desde las 16 semanas de gestación hasta los 8 años de vida, donde se desarrollan completamente la estructura tanto parenquimatosa como funcional, es decir alveolar pulmonar.

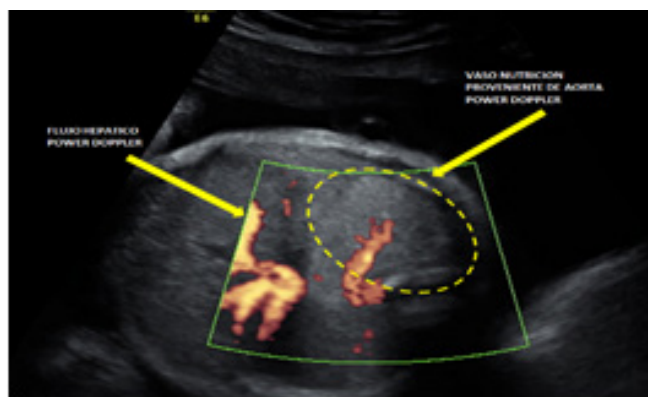


Figura 3. Al power Doppler.

Las masas congénitas pulmonares ocurren en los procesos de desarrollo ya sea por hipoplasia, displasia o hiperplasia, de uno o más de los componentes pulmonares. El secuestro pulmonar (SP) es un espectro de lesión consistente en parénquima pulmonar, con perfusión sistémica arterial. Fue descrito por primera vez en 1946<sup>11</sup> y se clasifica en intralobar (comparte pleura) y extralobar (tiene su propia pleura y sistema venoso). Esta patología es rara; la literatura describe reportes de casos de forma postnatal donde se evidencia infecciones respiratorias recurrentes y en imagenología se detecta la lesión pulmonar congénita<sup>11</sup>. Se ha encontrado asociación entre SP extralobar y malformaciones congénitas como hernia diafragmática, cardiopatías congénitas y condición adenomatosa pulmonar<sup>12</sup>. Prenatalmente y ecográficamente hay masa de localización paravertebral ocasionalmente asociada con pequeños quistes, además de infradiafragmáticamente; usando el Doppler color se evidencia suplencia venosa y arterial de la circulación sistémica<sup>13,14</sup>.

En el presente caso se evidencian las características ecográficas consideradas en cada reporte de caso previamente comentado, llamando la atención que usualmente en la literatura se hay embarazos simples con esta alteración pulmonar; sin embargo, en este caso se cuenta con un embarazo múltiple donde se detectan las características ultrasonográficas del SP, con el feto contrario completamente normal.

## Conclusiones

Los casos con SBP por lo general son asintomáticos y en algunos casos reversibles sin tratamiento. Pueden estar asociados con polihidramnios e hidrotórax, produciendo desplazamiento del corazón, pulmón y mediastino ipsilateral. En estos casos, se han estudiado diferentes métodos, entre los cuales la ablación arterial por fotocoagulación, ha mostrado ser más eficaz, con menos complicaciones, siendo suficiente como tratamiento definitivo, reduciendo el riesgo de cirugía postnatal.

## Conflicto de intereses

Los autores no tienen conflicto de interés.

## Referencias

1. Kitano Y, Sago H, Hayashi S, Kuroda T, Honna T, Morikawa N. Aberrant venous flow measurement may predict the clinical behavior of a fetal extralobar pulmonary sequestration. *Fetal Diagn Ther.* 2008; 23 (4): 299-302. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/18417996> DOI: 10.1159/000123617
2. Rammos KS, Foroulis CN, Rammos CK, Andreou A.. Prenatal interventional and postnatal surgical therapy of extralobar pulmonary sequestration. *Interactive Cardiovascular and Thoracic Surgery.* 2010; 10: () 634-5. URL disponible en: <http://icvts.oxfordjournals.org/content/10/4/634.full.pdf>
3. Coleman AM,, Merrow AC, Crombleholme TM, Jaekle R, Lim FY. Fetal MRI of torsed bronchopulmonary sequestration with tension hydrothorax and hydrops in a twin gestation. *Fetal Diagn Ther.* 2016; 40 (2): 156-60. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/25659425> DOI: 10.1159/000371513.
4. Lopoo JB, Goldstein RB, Lipshutz GS, Goldberg JD, Harrison MR, Albanese CT Fetal pulmonary sequestration: a favorable congenital lung lesion. *Obstet Gynecol.* 1999; 94 (4): 567-71. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/105113605>. Kreiger PA, Ruchelli ED, Mahboubi S, Hedrick H, Scott Adzick N, Russo PA. . Fetal pulmonary malformations: defining histopathology. *Am J Surg Pathol.* 2006; 30 (5): 643-9. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16699320> DOI: 10.1097/01.pas.0000202160.03611.5b
6. Baud D, Windrim R, Kachura JR, Jefferies A, Pantazi S, Shan P, et al., Minimally invasive fetal therapy for

- hydropic lung masses: three different approaches and review of the literature. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2013; 42 (4): 440-8. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/23712922> DOI: 10.1002/uog.12515
7. 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): 586-9. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/17444552> DOI: 10.1002/uog.3944
  8. Ruano R, Benachi A, Aubry MC, Revillon Y, Dumez ES, *et al.*, Prenatal diagnosis of pulmonary sequestration using three-dimensional power Doppler ultrasound. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2005; 25 (2): 12833. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15685645> DOI: 10.1002/uog.1797
  9. Oepkes D, Devlieger R, Lopriore E, Klumper FJ.. Successful ultrasound-guided laser treatment of fetal hydrops caused by pulmonary sequestration. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2007; 29 (4): 457-9. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/17352451> DOI: 10.1002/uog.3984
  10. Nijagal A, Jelin E, Feldstein VA, Courtier J, Urisman A, Jones KD, *et al.* The diagnosis and management of intradiaphragmatic extralobar pulmonary sequestrations: a report of 4 cases. *J Pediatr Surg.*(2012; 47 (8): 1501-5.
  11. William D. Winters, M.D., and Eric L. Effmann, M.D, Congenital masses of the lung: prenatal and postnatal imaging evaluation. *JThorac Imaging.* 2001; 16 (4): 196-206. URL disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11685086>
  12. Laurin S, Hagerstrand I. Intralobar bronchopulmonary sequestration in the newborn – a congenital malformation. *Pediatr Radiol.* 1999; 29 (3): 174-8.
  13. Black MD, Bass J, Carpenter BF. Intraabdominal pulmonary sequestration. *J Pediatr Surg* 1991; 26 (12): 1381-3. URL disponible en: <http://www.science-direct.com/science/article/pii/002234689191038Z> DOI:10.1016/0022-3468(91)91038-Z
  14. Davies RP, Ford WDA, Lequesne GW, Orelll SR. Ultrasonic detection of subdiaphragmatic pulmonary sequestration in utero and postnatal diagnosis by fine-needle aspiration biopsy. *J Ultrasound Med.* 1989; 8: 47-9. URL disponible en: <http://www.jultrasoundmed.org/content/suppl/2015/06/10/8.1.47.DC1/08.01.47.pdf>