

Reporte de caso

Secuestro pulmonar como causa de hipertensión pulmonar persistente en el recién nacido: a propósito de un caso

Pulmonary sequestration as a cause of persistent pulmonary hypertension in the newborn: a case report

Yonatan Andrés Naranjo Arango^a, John Byron Martínez Ríos^b, Galo Veintemilla Granados^c,
Valentina Martínez Parra^d

a. Médico General. Universidad Tecnológica de Pereira. Hospital Universitario San Jorge, Pereira, Risaralda. Colombia

b. Médico Pediatra. Universidad Tecnológica de Pereira. Unidad de Neonatología. Hospital Universitario San Jorge. Pereira, Risaralda, Colombia.

c. Cirujano Pediátrico. Hospital Universitario San Jorge. Pereira, Risaralda, Colombia

d. Médico General. Fundación Universitaria Autónoma de las Américas. Hospital Universitario San Jorge, Pereira, Risaralda. Colombia

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido: 18 de mayo de 2020

Aceptado: 22 de febrero de 2023

Editor Jefe

Fernando Suárez-Obando

Palabras clave:

Secuestro pulmonar

Hipertensión pulmonar persistente del recién nacido

Anomalías congénitas

Neumonectomía

Recién nacido.

R E S U M E N

Antecedentes: la hipertensión pulmonar persistente del recién nacido es un síndrome caracterizado por falla respiratoria aguda con hipoxemia ocasionado por el aumento de la resistencia vascular pulmonar de forma sostenida, con hipoxemia acentuada y cianosis generalizada. Dentro de las causas raras se encuentra el secuestro pulmonar. **Reporte de caso:** El presente caso es un paciente neonato, sin controles prenatales, quien cursó con un cuadro de dificultad respiratoria dependiente de ventilación mecánica invasiva prolongada, con sospecha de neumonía por los hallazgos en la radiografía de tórax y TAC, sin mejoría al tratamiento antibiótico y con deterioro del estado cardiorrespiratorio. Evaluado por cardiología y neumología pediátrica se halló la presencia de ductus arterioso persistente grande con repercusión hemodinámica, e hipertensión pulmonar persistente. Se realiza angio TAC de tórax con evidencia de secuestro pulmonar intralobar en pulmón derecho y circulación aberrante. Requirió resección quirúrgica. **Conclusiones:** La hipertensión pulmonar persistente es un síndrome con elevada morbilidad y mortalidad en los neonatos, por lo que es necesario realizar un diagnóstico temprano, identificar la etiología y tratarlo adecuadamente basado en medidas de soporte ventilatorio y vasodilatadores con el fin de disminuir la resistencia vascular pulmonar.

*Autor para correspondencia. Yonatan Andres Naranjo Arango

Correo electrónico: yonatanarango24@gmail.com

Keywords:

Bronchopulmonary sequestration
 Persistent pulmonary hypertension
 of the newborn
 Congenital abnormalities
 Pneumonectomy, newborn

A B S T R A C T

Background: Persistent pulmonary hypertension of the newborn is a syndrome characterized by acute respiratory failure with hypoxemia caused by a sustained increase in pulmonary vascular resistance, with marked hypoxemia and generalized cyanosis. Pulmonary sequestration is one of the rare causes. **Case report:** The present case is a neonatal patient without prenatal controls who presented with a picture of respiratory distress dependent on prolonged invasive mechanical ventilation, with suspicion of pneumonia based on the findings in the chest X-ray and CT, without improvement after antibiotic treatment, and with deteriorating cardiorespiratory status. He was assessed by pediatric cardiology and pulmonology, diagnosing the presence of a large patent ductus arteriosus with hemodynamic repercussions and persistent pulmonary hypertension. A chest CT angiography was performed, evidencing intralobar pulmonary sequestration in the right lung and aberrant circulation. It required surgical resection. **Conclusions:** Persistent pulmonary hypertension is a syndrome with high morbidity and mortality in neonates, so it is necessary to make an early diagnosis, identify the etiology and treat it appropriately based on ventilatory support and vasodilator measures to reduce pulmonary vascular resistances.

Introducción

El secuestro pulmonar es una malformación congénita pulmonar infrecuente, representando del 1 al 6 % de todas las anomalías congénitas pulmonares (1). Los pacientes pueden consultar por tos crónica, episodios de neumonía recurrente, hemoptisis, disnea, dolor torácico o permanecer asintomáticos durante años, con una presentación infrecuente en el periodo neonatal (2-4). Entre las causas más frecuentes de la hipertensión pulmonar persistente del recién nacido (HPPRN) está el síndrome de aspiración de meconio, síndrome de dificultad respiratoria, sepsis o neumonía (5,6); sin embargo, en un pequeño número de casos la HPPRN, es secundaria a malformaciones congénitas como el secuestro pulmonar (7). Se presenta el caso de un neonato con presencia de secuestro pulmonar intralobar como causa de HPPRN.

Reporte de caso

Neonato masculino a término por test de Ballard, producto del primer embarazo, de madre de 20 años, sin controles prenatales. Nació por cesárea, por presentación podálica. Peso al nacer de 2.195 gramos, talla 44 cm, con Apgar de 7, 8 al minuto 1 y 5 respectivamente. El paciente fue trasladado a unidad de cuidados intensivos neonatales (UCIN) por bajo peso al nacer. Dentro de los signos vitales se encuentra FC: 152, FR: 58, Temperatura de 35° C y SatO₂ del 91 % sin oxígeno suplementario. A la auscultación presentó ruidos cardiacos rítmicos de buena intensidad, sin soplos. Tórax simétrico con murmullo vesicular limpio, polipnea leve. Criptorquidia, testículos no palpables en bolsa escrotal o canal inguinal. Se realizaron exámenes de hemograma y gases arteriales con resultados normales; grupo TORCH negativo, ecografía testicular con análisis Doppler que reporta testículo derecho a nivel de fosa iliaca derecha homogéneo y de tamaño conservado.

Para el quinto día de hospitalización el neonato presentó intolerancia a la vía oral, emesis, distensión abdominal con aumento del perímetro abdominal de 3 cm y ausencia de depo-

siciones en las últimas 12 horas, se pasó sonda orogástrica y se obtiene leche sin digerir volumen de 60 mL, por lo que se sospecha enterocolitis necrotizante (ECN), se le suspende la vía oral, e inicia nutrición parenteral. En la radiografía simple de abdomen donde se observó íleo generalizado y edema de asas intestinales.

Posteriormente el paciente se desaturó, por lo cual se solicita gases arteriales que reportaron pH: 7.42, PaO₂: 54 mm Hg, PaCO₂: 50 mm Hg, Bicarbonato: 32.3, BE: 7.7, Lactato: 0.9. Presentó soplo sistólico grado III/VI. En el ecocardiograma se reportó, ligera dilatación de cavidades cardiacas derechas, ductus arterioso permeable (DAP) de 2.0 mm de diámetro central, insuficiencia tricúspidea leve, presión sistólica de arteria pulmonar: 50 mmHg; con base a la hipertensión pulmonar moderada, se inicia manejo con milrinone. Además, se le realizó radiografía de tórax (Ver imagen 1) con evidencia de consolidaciones a nivel parahiliar derecho y del lóbulo superior, que se interpreta como neumonía con realización de hemocultivos e inicio de antibióticos.

El paciente no mejoró con el manejo instaurado, se encuentra con disfunción respiratoria severa iniciándose ventilación mecánica de alta frecuencia. En hallazgos del TAC de tórax contrastado (Ver imagen 2) se encontraron consolidaciones basales bilaterales, disminución del volumen del parénquima pulmonar del lado derecho y elevación del hemidiafragma ipsilateral.

El paciente fue valorado por neumología pediátrica quien solicitó angio TAC de tórax (Ver figura 3) con reporte de secuestro pulmonar intralobar con doble estructura vascular arterial aberrante que irriga el lóbulo inferior del pulmón derecho, provenientes de la aorta abdominal y con comunicación con drenaje venoso al sistema pulmonar.

El paciente fue intervenido quirúrgicamente con la realización de una neumonectomía derecha por toracotomía. Dentro de los hallazgos quirúrgicos aparte de los vasos arteriales aberrantes de gran calibre se encontró que el secuestro pulmonar intralobar es masivo y compromete todo el pulmón derecho el cual no presenta lobulaciones.

Debido a la evolución desfavorable del paciente y que en el ecocardiograma de control se evidenció un aumento en el

tamaño del ductus (3.2 mm) con repercusión hemodinámica importante, se decidió realizar cierre quirúrgico del DAP mediante esternotomía media, debido a que el paciente presenta adicionalmente signos del síndrome post-neumonectomía el cual se corrige por la misma vía quirúrgica, mediante

colocación de material protésico (Bolas de *ping pong*). El paciente muestra inicialmente mejoría del cuadro clínico realizándose varios intentos de extubación sin éxito, el paciente fallece por un paro cardiorrespiratorio.



Imagen 1. Radiografía simple de tórax.
Consolidaciones a nivel parahiliar y del lóbulo superior derecho.



Imagen 2. TAC contrastado de tórax
Se evidencia consolidaciones basales bilaterales, disminución del volumen del parénquima pulmonar derecho y elevación del hemidiafragma ipsilateral.



Imagen 3. Angio TAC de tórax

Se evidencia dos estructuras vasculares arteriales que se originan de la aorta abdominal, una originada del tronco principal derecho que origina además la arteria renal homolateral. La segunda estructura arterial vascular se origina sobre el borde izquierdo de la aorta abdominal.

Discusión

La hipertensión pulmonar persistente del recién nacido es una causa frecuente de admisión en la unidad de cuidado intensivo. Entre sus causas se destaca la aspiración de meconio, síndrome de dificultad respiratoria, sepsis o neumonía, que deben ser diagnósticos para considerar inicialmente en el abordaje de estos pacientes, pero en un pequeño porcentaje de los casos, puede ser causado por malformaciones congénitas entre las que se encuentra el secuestro pulmonar (5-8), como sucedió con este neonato.

El secuestro pulmonar consiste en una porción de tejido pulmonar no funcional que puede o no estar separado del parénquima pulmonar y que cuenta con una irrigación arterial propia proveniente en su mayoría de la aorta torácica o abdominal. Se clasifica en intralobares y extralobares, siendo más frecuente la presentación intralobar (75 % de los casos), tal como la que presentó el paciente. Se ubica normalmente en los lóbulos inferiores, preferentemente el izquierdo y se presenta con mayor frecuencia en el género masculino (7,9,10).

Más del 50 % de los casos cursan asintomáticos y se diagnostican de forma accidental en un estudio radiológico en la adolescencia o en la edad adulta, por lo que su presentación en el periodo neonatal es infrecuente. En este caso el diagnóstico definitivo se realizó con un angio TAC que identifica el tejido pulmonar anormal con el vaso aberrante proveniente de

la circulación sistémica. Habitualmente un TAC de tórax contrastado puede ser suficiente para realizar el diagnóstico (2).

El tratamiento es la escisión quirúrgica abierta o toracoscópica, aunque la embolización arterial constituye un método alternativo con un éxito que es variable, sobre todo en pacientes de mayor edad (11-13).

Conclusión

La HPPRN es una condición clínica que requiere un diagnóstico oportuno y tratamiento adecuado con el fin de disminuir la morbilidad y mortalidad que puede conllevar esta enfermedad. El presente caso es de relevancia debido a la frecuencia relativamente alta de esta condición en las UCIN, siendo de vital importancia la identificación de la causa subyacente, por lo que es necesario realizar un enfoque diagnóstico adecuado descartando las causas principales, pero sin olvidar la posibilidad de etiologías infrecuentes dentro del diagnóstico diferencial.

Conflictos de interés

Los autores declaran no tener ningún conflicto de interés.

R E F E R E N C I A S

1. Alsumrain M, Ryu JH. Pulmonary sequestration in adults: a retrospective review of resected and unresected cases. *BMC Pulm Med.* 2018;18(1):97.
2. Walker CM, Wu CC, Gilman MD, Godwin JD, Shepard JAO, Abbott GF. The Imaging Spectrum of Bronchopulmonary Sequestration. *Curr Probl Diagn Radiol.* 2014;43(3):100–14.
3. Petersen G, Martin U, Singhal A, Criner GJ. Intralobar sequestration in the middle-aged and elderly adult: recognition and radiographic evaluation. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2003;126(6):2086–90.
4. Wei Y, Li F. Pulmonary sequestration: a retrospective analysis of 2625 cases in China. *European Journal of Cardio-Thoracic Surgery.* 2011;40(1):e39–42.
5. Lakshminrusimha S, Keszler M. Persistent Pulmonary Hypertension of the Newborn. *Neoreviews.* 2015;16(12):e680 LP-e692.
6. Arias D, Narváez C. Atención al recién nacido con hipertensión pulmonar persistente. *Repertorio de Medicina y Cirugía.* 2016;25(4):219–27.
7. Méndez L, Osorio O, Contreras M, García Del villar O, Vence C, Barrios K. Secuestro pulmonar una infrecuente causa de hipertensión pulmonar persistente en el recién nacido reporte de un caso. *Salud Uninorte.* 2017;33(3):532–7.
8. Jain A, McNamara PJ. Persistent pulmonary hypertension of the newborn: Advances in diagnosis and treatment. *Semin Fetal Neonatal Med.* 2015;20(4):262–71.
9. 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(1):96–101.
10. Salinas JA. Patología pulmonar congénita: Evaluación y manejo perinatal. *Revista Médica Clínica Las Condes.* 2016;27(4):485–98.
11. Laberge JM, Puligandla P, Flageole H. Asymptomatic congenital lung malformations. *Semin Pediatr Surg.* 2005;14(1):16–33.
12. Curros F, Chigot V, Emond S, Sayegh N, Revillon Y, Scheinmann P, et al. Role of embolisation in the treatment of bronchopulmonary sequestration. *Pediatr Radiol [Internet].* 2000;30(11):769–73.
13. Marine LM, Valdes FE, Mertens RM, Bergoeing MR, Kramer A. Endovascular Treatment of Symptomatic Pulmonary Sequestration. *Ann Vasc Surg.* 2011;25(5):696.e11-696.e15.