



ORIGINAL BREVE

Tratamiento endovascular del secuestro pulmonar con dispositivos tipo Amplatzer®

L. Rodríguez Guerineau^{a,*}, P. Suero Toledano^a, F. Prada Martínez^b, C. Mortera Pérez^b, J. Muchart López^c y M. Pons Odena^d

^a Servicio de Pediatría, Hospital Sant Joan de Déu, Universidad de Barcelona, Barcelona, España

^b Servicio de Cardiología Infantil, Hospital Sant Joan de Déu, Universidad de Barcelona, Barcelona, España

^c Servicio de Diagnóstico por la Imagen, Hospital Sant Joan de Déu, Universidad de Barcelona, Barcelona, España

^d Servicio de Cuidados Intensivos Pediátricos, Hospital Sant Joan de Déu, Universidad de Barcelona, Barcelona, España

Recibido el 15 de septiembre de 2011; aceptado el 7 de noviembre de 2011

Disponible en Internet el 24 de diciembre de 2011

PALABRAS CLAVE

Secuestro pulmonar;
Embolización;
Tapones vasculares
Amplatzer®

KEYWORDS

Pulmonary
sequestration;
Embolisation;
Amplatzer® vascular
plugs

Resumen El secuestro pulmonar es una malformación poco frecuente, que se caracteriza por tejido pulmonar sin conexión con la vía aérea y con vascularización sistémica. El tratamiento tradicional ha sido la cirugía, pero en los últimos años la embolización endovascular es una técnica cada vez más utilizada. Los materiales de embolización usados en la actualidad son los coils y los tapones vasculares tipo Amplatzer®. El tapón vascular Amplatzer® es un dispositivo de malla cilíndrico, autoexpandible, particularmente útil para la embolización de vasos grandes y de alto flujo. Presentamos a continuación 3 casos de secuestro pulmonar tratados mediante embolización con dispositivos de oclusión vascular tipo Amplatzer®. En los 3 casos se realizó el procedimiento sin incidencias, y se comprobó la oclusión total de la colateral aórtico-pulmonar.

Nuestra serie aporta nuevos datos sobre la seguridad y eficacia de la embolización de los secuestros pulmonares con tapones vasculares tipo Amplatzer®, y de su preferencia sobre los coils en la embolización de vasos nutricios grandes.

© 2011 Asociación Española de Pediatría. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Endovascular treatment of pulmonary sequestration with Amplatzer® vascular plugs

Abstract Pulmonary sequestration is a rare malformation characterised by non-functioning lung tissue, separated from the tracheobronchial tree and with arterial supply from the systemic circulation. The classical therapeutic approach is surgical resection. In recent years, the endovascular embolisation technique is increasingly being used for the treatment of this disease. The embolisation materials used are coils and vascular plugs. The Amplatzer® vascular

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: lrodriguez@hsjdbcn.org (L. Rodríguez Guerineau).

plug is a self-expandable cylindrical mesh device, particularly useful for the embolisation of large vessels with high flow. Three cases of pulmonary sequestration were treated by embolisation with Amplatzer® vascular plugs. In all cases the procedure was performed without complications, and the aortopulmonary collateral vessels were completely occluded.

Our study provides new data on the safety and efficacy of pulmonary embolisation with Amplatzer® vascular plugs, and its preference over coils in the embolisation of large vessels.

© 2011 Asociación Española de Pediatría. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

El secuestro pulmonar (SP) es una malformación poco frecuente, que se caracteriza por tejido pulmonar sin conexión con la vía aérea inferior y con vascularización sistémica. Se divide en dos tipos según la relación con la pleura: intralobar cuando está incluido dentro de la pleura o extralobar si tiene cobertura pleural propia¹. Por el riesgo de infecciones recurrentes y deterioro progresivo de la función pulmonar, el tratamiento tradicional ha sido la cirugía, aunque es discutible en los casos asintomáticos. En los últimos años y dado el avance en las técnicas de intervencionismo endovascular, la embolización parece ser una técnica segura y eficaz para el tratamiento de esta patología, evitando los riesgos de una lobectomía. La técnica consiste en obtener un acceso arterial, generalmente la arteria femoral, y a través de ella acceder a la arteria colateral aórtico-pulmonar que irriga el SP. Luego se procede a la embolización con coils o un tapón vascular (Amplatzer® Vascular Plug), y finalmente se comprueba la correcta oclusión de la misma². Presentamos a continuación 3 casos de SP tratados mediante embolización con dispositivos de oclusión vascular tipo Amplatzer®.

Caso 1

Lactante de 3 meses con diagnóstico posnatal de canal auriculoventricular que ingresa por cuadro de dificultad respiratoria aguda por descompensación de su cardiopatía de base. En la radiografía de tórax se observa una desviación del mediastino hacia la derecha con signos de hipoplasia

pulmonar derecha. Ante esta sospecha se realiza un estudio angiográfico y de parénquima pulmonar mediante tomografía computarizada (TC). El estudio de TC (LightSpeed Ultra, General Electric, Milwaukee, Estados Unidos), realizado con baja dosis de radiación, muestra una asimetría de tamaño entre ambas arterias pulmonares, la derecha con un calibre ligeramente menor y con disminución del tamaño del pulmón derecho. A nivel retrocardíaco, entre ambas pleuras viscerales posteriores, se aprecia un lóbulo accesorio con una aferencia vascular sistémica desde el tronco celiaco de 3 mm de grosor (fig. 1A y 1B) y con drenaje a la vena pulmonar inferior derecha, hallazgos compatibles con secuestro pulmonar y leve hipoplasia pulmonar.

A los 6 meses de vida y tras varios ingresos por cuadros de sobreinfección respiratoria se decide la embolización electiva del secuestro extralobar. Se accede a través de la arteria femoral a la colateral aórtico-pulmonar. Se coloca un dispositivo de oclusión vascular Amplatzer® de 6 mm sin incidencias, con oclusión completa de la arteria nutricia. Posteriormente se realiza corrección quirúrgica de la cardiopatía congénita a los 8 meses de edad. El control por TC pulmonar muestra la involución parcial del SP. Asintomática hasta la fecha, no ha requerido nuevos ingresos.

Caso 2

Niña de 11 años derivada a nuestro centro para valoración por cardiología con diagnóstico neonatal de síndrome de la cimitarra (drenaje venoso pulmonar anómalo parcial a vena

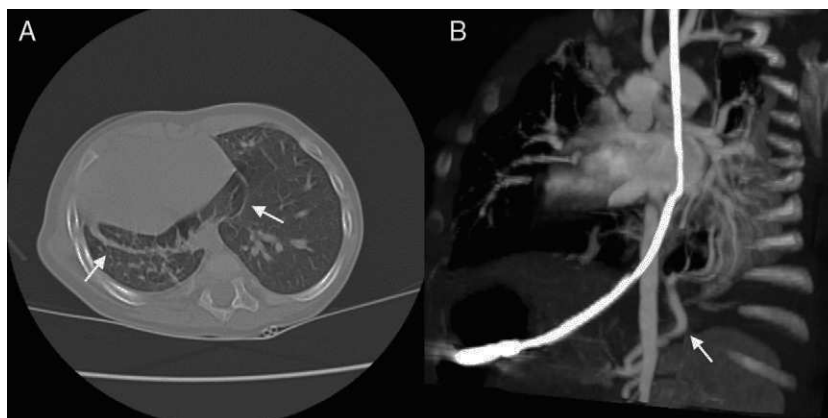


Figura 1 Estudio de tórax mediante TC. A: Reconstrucción axial en filtro de pulmón. Se aprecia el lóbulo accesorio a nivel retrocardíaco entre ambas pleuras viscerales (flechas). B: Reconstrucción MIP (proyección de máxima intensidad) en proyección oblicua izquierda para valoración de la vascularización. Se aprecia una estructura vascular anómala que se origina en el tronco celiaco y se extiende cranealmente hacia la base pulmonar derecha/línea media (flecha).

cava inferior y venas suprahepáticas, hipoplasia de pulmón derecho y arteria pulmonar derecha, secuestro extralobar). Asintomática hasta la fecha con buen desarrollo ponderoestructural. Se realiza estudio angiográfico que confirma la presencia de una arteria de pequeño calibre proveniente de la aorta descendente a nivel de D12, que irriga el segmento posterior del lóbulo inferior derecho. Se constata durante el procedimiento hipertensión pulmonar leve (presión media de la arteria pulmonar de 28 mmHg), por lo que se decide oclusión de la colateral arterial para el consiguiente descenso de la presión pulmonar. Se procede a la embolización mediante el uso de un coil de 3 × 5 seguido de un dispositivo ocluidor tipo Amplatzer® de 4 mm y otro de 8 mm, lográndose oclusión completa sin incidencias (fig. 2).

Sigue controles anuales por cardiología del centro emisor, sin signos de hipertensión pulmonar en las ecocardiografías. No se han realizado nuevas pruebas de imagen pulmonar desde la embolización ya que permanece asintomática.

Caso 3

Niña de 7 años derivada a nuestro centro para valoración por cardiología con diagnóstico de síndrome de la cimitarra (dextrocardia, drenaje venoso pulmonar anómalo parcial que comunica la vena pulmonar inferior derecha a través de un gran vaso de 8-9 mm con la vena cava inferior e hipodesarrollo de arteria pulmonar derecha). Antecedente de varios episodios de broncoespasmo con hiperreactividad bronquial, en tratamiento preventivo con fluticasona

inhalada. En la TC torácica se visualiza la presencia de un vaso sistémico de unos 7 mm de diámetro que nace de la aorta abdominal, cerca de la salida del tronco celiaco y que irriga el lóbulo inferior derecho. Se realiza fibrobroncoscopia que muestra la entrada bronquial al lóbulo inferior derechoestenótica. Se realiza de forma electiva estudio angiográfico, con cierre de la arteria que nutre la zona del secuestro pulmonar mediante tapón vascular (Amplatzer® de 16 mm) con oclusión completa y sin incidencias. En el mismo procedimiento se procede a la oclusión del segmento inferior de la vena cimitarra que drenaba en vena cava inferior. En seguimiento por cardiología del centro emisor. Los episodios de broncoespasmo han disminuido, y no ha requerido nuevos ingresos. No se ha realizado control por TC pulmonar dada la buena evolución.

Discusión

Si bien la cirugía ha sido el tratamiento convencional del SP, cada vez más las técnicas de intervencionismo se están usando como una estrategia más segura e igualmente eficaz. Un resumen de las series más numerosas y reportes de casos de pacientes pediátricos con SP tratados con embolización puede verse en la tabla 1³⁻¹². En los primeros procedimientos de embolización arterial del SP se utilizaban diferentes materiales, entre ellos sustancias químicas como alcohol polivinílico y gelfoam, y balones desprendibles. En la actualidad se prefieren los coils y los tapones vasculares tipo Amplatzer®^{2,3,10}. Si bien en la mayoría de las series

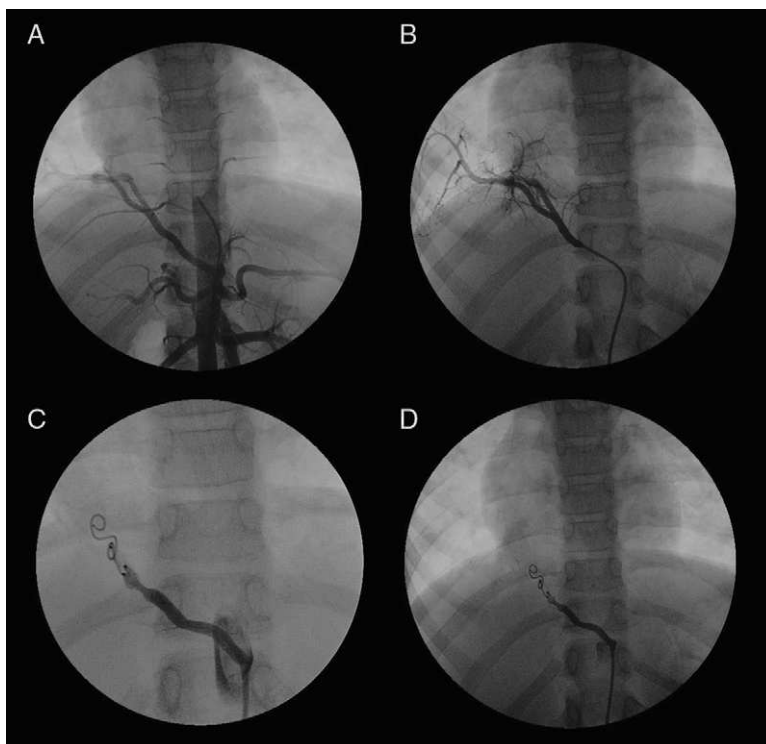


Figura 2 Embolización endovascular de colateral aórtico-pulmonar. A: Imagen angiográfica de aorta descendente, donde puede observarse el nacimiento del vaso nutricional del SP (colateral aórtico-pulmonar). B: Acceso a la arteria colateral aórtico-pulmonar que irriga el SP. C: Embolización de la colateral mediante un coil y 2 tapones vasculares tipo Amplatzer®. D: Comprobación de la oclusión completa del vaso nutricional tras la embolización.

Tabla 1 Resumen de los casos de secuestro pulmonar (SP) tratados mediante embolización

Referencia (año de publicación)	N.º de casos	Material de embolización	Oclusión total	Complicaciones relacionadas con la embolización	Complicaciones posteriores	Segundaembolización	Cirugía	Involución del SP
Chien <i>et al.</i> ³ (2009)	6	Coils	4 (2 parcial)	1 Isquemia de extremidad	2 Infección ^a	2 ^a	-	Completa 3 Parcial 3
Xie <i>et al.</i> ⁴ (2009)	3	Coils	3	-	-	-	-	-
Hwang <i>et al.</i> ⁵ (2008)	1	Amplatzer	1	-	No	-	-	Parcial
Nayar <i>et al.</i> ⁶ (2005)	1	Coils, Amplatzer	1	-	Recanalización + fiebre	1	-	Completa
Lee <i>et al.</i> ⁷ (2003)	5	Sustancias químicas, coils	5	1 trombosis arterial	-	-	-	Completa 4 Parcial 1
Crushell <i>et al.</i> ⁸ (2002)	1	Amplatzer	1	-	-	-	-	-
Tokel <i>et al.</i> ⁹ (2000)	2	Sustancias químicas, coils	2	-	No	-	-	-
Curros <i>et al.</i> ¹⁰ (2000)	16	Sustancias químicas y coils	10 (6 parcial)	1 Isquemia de extremidad 2 Fiebre y dolor, 1 derrame pleural ^b	2 Recanalización 1 Infección ^c	2 ^c	1 ^c	Completa 10 Parcial 4 2 ND ^c
Park <i>et al.</i> ¹¹ (1998)	1	Sustancias químicas, coils	1	1 Trombosis arterial	-	-	-	Parcial
Gao <i>et al.</i> ¹² (1993)	4	Sustancias químicas, coils, balón	-	-	2 Éxitus ^d	-	-	-

^a En los 2 casos de oclusión parcial, se infectaron los SP tras la embolización y fue necesario una reembolización.

^b Los 2 casos de fiebre y dolor (síndrome postembolización) se produjeron tras la embolización con etanol, probablemente debido a la rápida necrosis del SP por el etanol. Uno de ellos presentó además derrame pleural.

^c Los 2 casos que se recanalizaron tras la primera embolización requirieron una segunda embolización. Uno de estos finalmente fue operado tras la infección del SP. ND: no disponible.

^d Causa de la muerte: En 1 caso por sepsis con infarto del secuestro, en el otro caso por infección no relacionada con el SP; en ambos casos en el contexto de cardiopatías congénitas graves.

pediátricas han utilizado coils como material de embolización, el uso de dispositivos tipo Amplatzer® en el SP se ha descrito en adultos y en pocos casos de SP pediátrico^{5,6,8,13}. Nuestro protocolo preferencia el uso de los coils para el cierre de vasos nutricios menores de 4 mm de diámetro y tapones vasculares de Amplatzer® si el vaso mide 4 mm o más.

El tapón vascular Amplatzer® es un dispositivo de malla cilíndrico, autoexpandible, disponible en tamaños de 4 a 16 mm, en incrementos de 2 mm. Este dispositivo es utilizado en pacientes con colaterales aortopulmonares, malformaciones arteriovenosas pulmonares, colaterales veno-venosas, fístulas coronarias y ciertos tipos de cardiopatías como el ductos arterioso persistente, ya que es particularmente útil para la embolización de vasos grandes, cortos, de alto flujo, en los que sería necesario la utilización de múltiples coils y posible la migración de los mismos^{2,14,15}.

Las complicaciones asociadas a la intervención son las propias del cateterismo (trombosis arterial, hemorragia, isquemia transitoria de la extremidad), y del procedimiento pulmonar (derrame, fiebre y dolor), como así también la embolización accidental de ramas de la aorta. Estas complicaciones se pueden producir tanto en niños como en adultos, aunque la isquemia de la extremidad parece ser más frecuente en lactantes^{3,10,16}. La oclusión del vaso nutricio del SP es completa en el 62-100% de las series analizadas. Las embolizaciones parciales no disminuirían el riesgo de infección, por lo que algunas veces es necesario una 2.ª embolización^{3,10}. No se han publicado embolizaciones parciales en el momento del procedimiento con el uso de Amplatzer® debido al tamaño del dispositivo, lo cual sugiere que podría ser más efectivo en el caso de SP con vasos nutricios grandes. En algunos casos, sobre todo en los SP infectados o recanalizados, puede ser necesario el tratamiento quirúrgico¹⁰. En nuestra serie, los 3 casos fueron tratados con dispositivos tipo Amplatzer® con oclusión total de la colateral aórtico-pulmonar, y no se produjeron complicaciones durante o posteriores al procedimiento.

El seguimiento de estos pacientes suele demostrar la involución total del SP tras la embolización en la mayoría de los casos^{3,10}. En nuestra serie solo disponemos de un TC de control en el caso número 1, realizado 2 meses después de la embolización, que muestra involución parcial del SP. En los otros dos casos no se han realizado pruebas de imagen pulmonar dada la buena evolución clínica.

En resumen esta serie aporta nuevos datos sobre la seguridad y eficacia de esta técnica y de la preferencia de los tapones vasculares tipo Amplatzer® sobre los coils en la embolización de SP con vasos nutricios grandes. Son necesarios estudios multicéntricos que comparen estas técnicas endovasculares con la técnica quirúrgica de referencia.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Corbett HJ, Humphrey GM. Pulmonary sequestration. *Paediatr Respir Rev.* 2004;5:59-68.
2. Walsh KP. Advanced embolization techniques. *Pediatr Cardiol.* 2005;26:275-88.
3. Chien KJ, Huang TC, Lin CC, Lee CL, Hsieh KS, Weng KP. Early and late outcomes of coil embolization of pulmonary sequestration in children. *Circ J.* 2009;73:938-42.
4. Xie CH, Xia CS, Gong FQ, Zhou YB, Zhu WH. Interventional occlusion of congenital vascular malformations. *World J Pediatr.* 2009;5:296-9.
5. Hwang HK, Tsai YS, Lin SM, Chen MR. Occlusion of an aberrant artery to an intralobar pulmonary sequestration using an Amplatzer Vascular Plug. *Pediatr Pulmonol.* 2008;43:933-5.
6. Nayar PM, Thakral CL, Sajwani MJ. Congenital lobar emphysema and sequestration-treatment by embolization. *Pediatr Surg Int.* 2005;21:727-9.
7. Lee KH, Sung KB, Yoon HK, Ko GY, Yoon CH, Goo HW, et al. Transcatheter arterial embolization of pulmonary sequestration in neonates: long-term follow-up results. *J Vasc Interv Radiol.* 2003;14:363-7.
8. Crushell E, Saidi A, Al-Hassan A, Walsh K. Occlusion of an aberrant artery to a pulmonary sequestration using a duct occluder. *J Interv Cardiol.* 2002;15:415-6.
9. Tokel K, Boyvat F, Varan B. Coil embolization of pulmonary sequestration in two infants: a safe alternative to surgery. *AJR Am J Roentgenol.* 2000;175:993-5.
10. Curros F, Chigot V, Emond S, Sayegh N, Revillon Y, Scheinman P, et al. Role of embolisation in the treatment of bronchopulmonary sequestration. *Pediatr Radiol.* 2000;30:769-73.
11. Park ST, Yoon CH, Sung KB, Yoon HK, Goo DE, Kim KS, et al. Pulmonary sequestration in a newborn infant: treatment with arterial embolization. *J Vasc Interv Radiol.* 1998;9:648-50.
12. Gao YA, Burrows PE, Benson LN, Rabinovitch M, Freedom RM. Scimitar syndrome in infancy. *J Am Coll Cardiol.* 1993;22:873-82.
13. Leoncini G, Rossi UG, Ferro C, Chessa L. Endovascular treatment of pulmonary sequestration in adults using Amplatzer(R) vascular plugs. *Interact Cardiovasc Thorac Surg.* 2011;12:98-100.
14. Hijazi ZM. New device for percutaneous closure of aortopulmonary collaterals. *Catheter Cardiovasc Interv.* 2004;63:482-5.
15. Schwartz M, Glatz AC, Rome JJ, Gillespie MJ. The Amplatzer vascular plug and Amplatzer vascular plug II for vascular occlusion procedures in 50 patients with congenital cardiovascular disease. *Catheter Cardiovasc Interv.* 2010;76:411-7.
16. Ganeshan A, Freedman J, Hoey ET, Steyn R, Henderson J, Crowe PM. Transcatheter coil embolisation: a novel definitive treatment option for intralobar pulmonary sequestration. *Heart Lung Circ.* 2010;19:561-5.