

# Lobectomía toroscópica en pacientes con malformación adenomatoidea quística

D. Cabezalí Barbancho, I. Cano Novillo, A. García Vázquez, M. López Díaz, R. Tejedor Sánchez, M. Benavent Gordo, A. Gómez Fraile

Sección de Cirugía General. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario "12 de Octubre". Madrid.

## RESUMEN

**Introducción.** El tratamiento de los pacientes asintomáticos con malformación adenomatoidea quística (MAQ) es controvertido. En este trabajo evaluamos la lobectomía por vía toroscópica en pacientes con dicha malformación analizando los diferentes aspectos técnicos, las complicaciones y su resolución.

**Material y métodos.** Hemos intervenido 6 pacientes con diagnóstico de MAQ mediante toroscopia. Todos los pacientes eran menores de un año y en ningún caso habían presentado síntomas. Se realizó toroscopia con intubación selectiva y neumotórax controlado a baja presión y bajo flujo. Empleamos 3 ó 4 trócares en función de la dificultad de la disección. Para el control de la vascularización pulmonar utilizamos un sellador térmico y el cierre de los bronquios se realizó mediante sutura intracorpórea. Se han analizado los siguientes parámetros: edad, localización de lesión, técnica quirúrgica, complicaciones postquirúrgicas, estancia hospitalaria, resultado final y tiempo de seguimiento.

**Resultados.** La lesión se localizó en lóbulo inferior derecho en cuatro ocasiones (66,7%) y en lóbulo medio en dos (33,3%). En los seis casos la lobectomía fue completada por vía toroscópica con éxito. Dos pacientes (33,3%) presentaron hemotórax en el postoperatorio inmediato, que no precisó transfusión ni drenaje. El ingreso medio fue de 6 días. Actualmente todos los pacientes están asintomáticos, con un tiempo de seguimiento medio de 2 años y 8 meses.

**Conclusión.** El menor número de complicaciones y efectos secundarios de la lobectomía toroscópica frente a la toracotomía convencional hacen de esta técnica una opción terapéutica válida y eficaz para el tratamiento de los pacientes asintomáticos con MAQ. No obstante, es necesario un mayor número de casos para validar y perfeccionar completamente la técnica.

**PALABRAS CLAVE:** Toroscopia; Lobectomía; Malformación adenomatoidea quística.

## THORACOSCOPIC LOBECTOMY IN PATIENTS WITH CONGENITAL CYSTIC ADENOMATOID MALFORMATION

### ABSTRACT

**Background.** The management of asymptomatic patients with congenital cystic adenomatoid malformation (CCAM) is controversial. This

**Correspondencia:** Daniel Cabezalí Barbancho. C/ Beasain 35, 6ºF. 28041 Madrid.

e-mail: dcabezali@yahoo.es

Recibido: Mayo 2007

Aceptado: Diciembre 2007

report evaluates the video-assisted thoracoscopic (VAT) lobectomy in children with this malformation, and the different intraoperative complications and their resolution are discussed.

**Methods.** Six patients with CCAM underwent video-assisted thoracoscopic lobectomy. All the patients were under one year and all of them were asymptomatic at the diagnosis. The procedures were performed with single lung ventilation and the chest was insufflated with a low flow and pressure to complete collapse of the lung. We used 3 or 4 thoracoscopic ports depending on the difficulty of the dissection. A bipolar sealing device was the preferred mode of vessel ligation and bronchi were closed with interrupted sutures. The following features have been taken into account: age at diagnosis, localization, surgical technique, complications, hospital stay, results, and time of follow-up.

**Results.** Four lesions were on the right lower lobe (66.7%) and two (33.3%) in the middle lobe. All the procedures were completed thoracoscopically. Chest tubes were left in all cases. Two patients (33.3%) showed postoperative hemothorax but it didn't need blood transfusion. Mean hospital stay was 6 days. At the moment all the patients are asymptomatic with and the mean time of follow-up has been 2 years and 8 months.

**Conclusions.** VAT lobectomy avoids the long-term morbidity associated to an open thoracotomy and therefore it is a safe and efficacious technique in asymptomatic children with CCAM. Moreover, a greater number of cases are necessary to validate and to improve the technique.

**KEY WORDS:** Thoracoscopy; Lobectomy; Congenital cystic malformation.

## INTRODUCCIÓN

Las masas intratorácicas diagnosticadas prenatalmente con más frecuencia son las malformaciones adenomatoideas quísticas (MAQ) y los secuestros pulmonares. La mayoría permanecen estables e incluso pueden regresar y es raro que produzcan complicaciones en el feto. Aunque después del nacimiento la mayoría de los pacientes permanecen asintomáticos, la posibilidad de infecciones pulmonares y de malignización hace que su tratamiento de elección sea la extirpación quirúrgica. Con la aparición de la cirugía mínimamente invasiva (CMI) algunos autores comenzaron a realizar este procedimiento mediante toroscopia, disminuyendo la mor-

bilidad asociada a la toracotomía. Exponemos en este trabajo nuestra experiencia en el tratamiento de la MAQ mediante toracosopia, explicando nuestra técnica quirúrgica y analizando los resultados que hemos obtenido.

## MATERIAL Y MÉTODOS

Hemos realizado un estudio retrospectivo descriptivo con los 6 pacientes diagnosticados de MAQ y que han sido tratados mediante toracosopia en nuestro centro entre los años 2004 y 2006. Todos los pacientes fueron diagnosticados prenatalmente mediante ecografía y a un paciente se le realizó una resonancia magnética nuclear. Cuando existieron dudas sobre el diagnóstico, se realizó una tomografía axial computarizada en el periodo neonatal. Se han analizado los siguientes parámetros: edad, localización de la lesión, técnica quirúrgica, complicaciones postquirúrgicas, estancia hospitalaria, resultado final y tiempo de seguimiento.

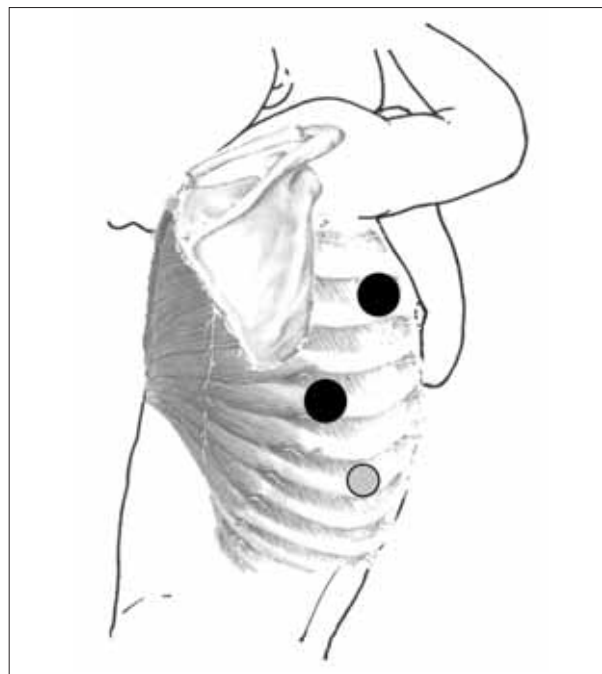
### Técnica quirúrgica

Una vez realizada la intubación selectiva del hemitórax sano, el paciente se posiciona en decúbito lateral inclinado unos 30° sobre la horizontal. Se coloca un trocar de 5 mm mediante técnica abierta a nivel del quinto o sexto espacio intercostal línea media clavicular que sirve para alojar la óptica de 30°. El resto de trócares, otro de 5 mm y uno de 3,5 mm se introducen bajo visión directa a nivel del 3<sup>er</sup> y 8<sup>o</sup> espacios intercostales línea anterior clavicular (Fig. 1). En ocasiones es necesario otro puerto de 3,5 mm para ayudarnos a la disección. Cuando el pulmón no está lo suficientemente colapsado para permitirnos una adecuada visión, se provoca un neumotórax controlado a baja presión (6-8 mm Hg) y bajo flujo (1,5-2,5 L/min). Para la disección empleamos el Ligasure® (Valleylab; Boulder, CO, USA) sellador térmico bipolar de 5 mm que permite el sellado de vasos de hasta 7 mm. Los vasos lobares se disecan periféricamente y posteriormente se sellan con el Ligasure®. El bronquio, una vez cortado, se sutura intracorpóreamente mediante puntos simples (Fig. 2). Una vez completada la lobectomía, se extrae el lóbulo ampliando una de las incisiones de los trócares de 5 mm. Finalmente, se deja un tubo de drenaje endotorácico.

## RESULTADOS

La distribución por sexos fue: cuatro niños y dos niñas. La edad media de los pacientes intervenidos ha sido 10,5 meses (rango: 6-19 meses).

La lesión se localizó en el lóbulo inferior derecho en cuatro ocasiones (66,7%) y en el lóbulo medio en dos (33,3%) En los seis casos la lobectomía fue completada por vía completamente toracoscópica con éxito. No hubo complicaciones intraoperatorias. El tiempo quirúrgico medio fue de 120 minutos (rango: 70-180 minutos). Dos pacientes (33,3%) presen-



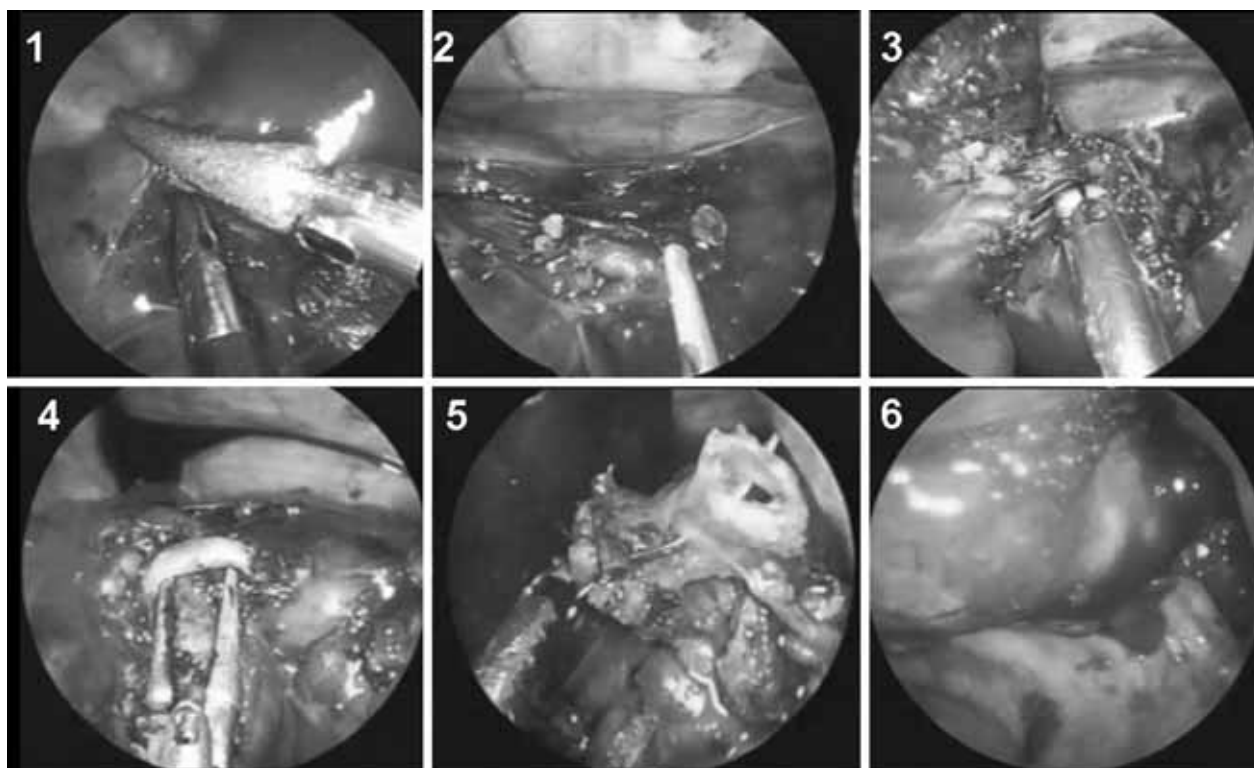
**Figura 1.** Posición de los trócares en el paciente: un trocar de 5 mm a nivel del quinto espacio intercostal línea media clavicular y dos trócares de 3,5 mm y 5 mm a nivel de 3<sup>o</sup> y 7<sup>o</sup> espacios intercostales línea axilar anterior, respectivamente.

taron hemotórax en el postoperatorio inmediato, que no precisó transfusión ni drenaje. En ningún paciente hubo fístulas broncopleurales. Los tubos de drenaje endotorácico se mantuvieron una media de 2,8 días (rango: 2-4 días) El ingreso medio fue de 6 días. El diagnóstico anatomopatológico según la clasificación de Stoker fue MAQ tipo I en 4 pacientes y tipo II en dos.

Actualmente todos los pacientes están asintomáticos con un tiempo de seguimiento medio de 2 años y 8 meses.

## DISCUSIÓN

La característica esencial de la MAQ es un crecimiento excesivo de los bronquiolos con supresión casi total del desarrollo alveolar. Generalmente, solo se afecta un lóbulo aislado. Esta entidad nosológica se ha subdividido clásicamente según la clasificación de Stocker en tres tipos. El tipo I incluye quistes únicos o múltiples mayores de 2 cm de diámetro revestidos por epitelio cilíndrico pseudoestratificado ciliar. Entre los quistes puede haber estructuras similares a alvéolos normales. El tipo II está integrado por quistes pequeños múltiples, menores de 1 cm de diámetro, revestidos de epitelio cilíndrico o cuboide ciliado. Entre estos quistes pueden existir bronquiolos respiratorios y alvéolos distendidos y no hay células mucosas ni cartílago. El tipo III incluye malformaciones grandes no quísticas<sup>(1)</sup>.



**Figura 2.** Pasos de la técnica de una lobectomía inferior derecha toracoscópica. 1: Apertura de la fisura y disección del hilio lobar. 2: Disección y sellado de las venas pulmonares. 3: Disección y corte del bronquio lobar. 4: Sellado de arterias pulmonares. 5: Cierre del bronquio con puntos simples. 6: Extracción de la pieza ampliando la incisión de uno de los trócares de 5 mm.

Estas lesiones se diagnostican, generalmente, en el periodo prenatal mediante ecografías en las que se observan como masas hiperecogénicas, quísticas o lesiones mixtas intratorácicas, que desplazan a veces el corazón y el mediastino fetal. Suelen permanecer con un tamaño relativamente constante, pero en ocasiones pueden regresar. Las MAQ grandes causan a veces la muerte fetal por desarrollo de hidropesía, hipoplasia del pulmón normal y compresión cardíaca y de la vena cava<sup>(2-5)</sup>.

La mayoría de los pacientes permanecen asintomáticos al nacimiento y presentan radiografías de tórax aparentemente normales. La tomografía axial computarizada (TAC) puede ayudar a confirmar estas lesiones diagnosticadas prenatalmente. En las malformaciones no infectadas la TAC muestra masas quísticas multiloculares con paredes delgadas. Las lesiones infectadas tienen un aspecto complejo, con una mezcla de tejido sólido quístico y con definición variable de los márgenes<sup>(6,7,8)</sup>.

Algunos autores proponen un tratamiento expectante en los pacientes asintomáticos, pero la posibilidad de infección y degeneración maligna hacen que la mayoría de las publicaciones propongan la lobectomía como el tratamiento de elección<sup>(3,9,10)</sup>. Nosotros preferimos intervenir a los pacientes antes de que tengan infecciones pulmonares, ya que éstas pueden generar adherencias pulmonares que dificultan la cirugía<sup>(11)</sup>. Actualmente, en nuestro centro, realizamos la lobectomía

entre los 6 y 12 meses de edad si los pacientes están asintomáticos, o antes si presentan síntomas.

Clásicamente la lobectomía se ha realizado mediante una toracotomía posterolateral. Esta vía de abordaje produce alteraciones musculoesqueléticas que pueden llegar incluso a ocasionar problemas ventilatorios en los pacientes<sup>(12-14)</sup>. Esta morbilidad asociada a la toracotomía puede evitarse con la toracoscopia<sup>(10,15-17)</sup>. Estudios recientes en la población adulta que comparan la toracoscopia frente a la toracotomía muestran unos mejores resultados de la toracoscopia en términos de morbilidad, control del dolor, estancia hospitalaria y aspecto estético<sup>(18)</sup>. Las indicaciones de la toracoscopia en el ámbito pediátrico van aumentando a medida que aparecen mejoras tecnológicas que nos permiten afrontar la cirugía de determinadas patologías con seguridad<sup>(15-17)</sup>. En la lobectomía toracoscópica en niños surgen algunos problemas técnicos que el cirujano debe saber resolver. En primer lugar, la intubación selectiva puede no ser suficiente para ofrecernos un buen campo de visión, y puede ser necesaria la creación de un neumotórax controlado a baja presión y bajo flujo. El otro desafío es el manejo del hilio pulmonar. Esto puede controlarse con el Ligasure® que permite el sellado con seguridad de los vasos pulmonares en niños pequeños<sup>(10,17)</sup>. La experiencia en el empleo de la cirugía mínimamente invasiva otorga al cirujano la seguridad para realizar técnicas avanzadas y para solventar diversos problemas que pueden surgir durante el procedimiento. Algunos autores pre-

fieren cerrar el bronquio con clips. Nosotros efectuamos un cierre con puntos simples anudados intracorpóreamente. No hemos observado fístulas broncopleurales con esta técnica.

Creemos que la lobectomía torascópica es una técnica eficaz y segura que ofrece, como en otras lesiones tratadas por esta vía, un menor dolor postoperatorio, una menor estancia hospitalaria y unos buenos resultados estéticos. Pero es en la disminución de la morbilidad asociada a la toracotomía en la infancia donde la toracoscopia muestra su principal ventaja, ya que estamos manejando una patología que para muchos autores no debe ser tratada y, por lo tanto, el daño que provoquemos debe ser menor que el beneficio de la lobectomía.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Stocker JE et al. Cystic adenomatoid malformation of the lung. Morphologic analysis. *Human Pathol* 1977; 8: 55-62
2. Dell Agnola C, Tadini B, Mosca F, Colnaghi M, Wesley J. Advantages of prenatal diagnosis and early surgery for congenital cystic disease of the lung. *J Perinat Med* 1996; 24: 621-631.
3. Sauvat F, Michel JL, Benachi A, Emond S, Revillon Y. Management of asymptomatic neonatal cystic adenomatoid malformations. *J Pediatr Surg* 2003; 38: 548-552.
4. MacGillivray TE, Harrison MR, Goldstein RB, Adzick NS. Disappearing fetal lung lesions. *J Pediatr Surg* 1993; 28: 1321-1324.
5. Budorick NE, Pretorius DH, Leopold GR, Stamm ER. Spontaneous improvement of intrathoracic masses diagnosed in utero. *J Ultrasound Med* 1992; 11 :653-662.
6. Revillon Y, Jan D, Plattner V, Sonigo P, Dommergues M, Mandelbrot L, Dumez Y, Nihoul-Fékété C. Congenital cystic malformation of the lung: prenatal management and prognosis. *J Pediatr Surg* 1993; 28: 1009.
7. Winters WD, Effman EL, Nghiem HV, Nyberg DA. Disappearing fetal lung masses: importance of postnatal imaging studies. *Pediatr Radiol* 1997; 27: 535-539.
8. Shackelford GD, Siegel MJ. CT appearance of cystic adenomatoid malformations. *J Comput Assist Tomogr* 1996; 112: 61-62.
9. Neilson IR, Russo P, Laberge JM, Filiatrault D, Nguyen LT, Collin PP, Guttman FM. Congenital adenomatoid malformation of the lung: current management and prognosis. *J Pediatr Surg* 1991; 26: 975.
10. Albanese CT, Sydorak RM, Tsao K, Lee H. Thoracoscopic lobectomy for prenatally diagnosed lung lesions. *J Pediatr Surg* 2003; 38: 553-555.
11. Jesch N, Leonhardt J, Sumpelmann R et al. Thoracoscopic resection of intra and extralobar pulmonary sequestration in the first 3 months of life. *J Pediatr Surg* 2005; 40: 1404-1406
12. Jaureguizar E, Vazquez J, Murcia J, Diez Pardo JA. Morbid musculoskeletal sequelae of thoracotomy for tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg*. 1985; 20(5): 511-4
13. Seghayé MC, Grabitz, R, Alzen G et al. Thoracic sequelae after surgical closure of the patent ductus arteriosus in premature infants. *Acta Paediatr*. 1997; 86(2): 213-6
14. Bal S, Elshershari H, Celiker R, Celiker A. Thoracic sequelae after thoracotomies in children with congenital cardiac disease. *Cardiol Young*. 2003; 13(3): 264-7.
15. Rothenberg SS, Chang JHT, Bealer JF. Experience with minimally invasive surgery in infants. *Ann J Surg* 1998; 176: 654-658.
16. Rothenberg SS. Thoracoscopic lung resection in children. *J Pediatr Surg* 2000; 35: 271-275.
17. Rothenberg SS. Experience with thoracoscopic lobectomy in infants and children. *J Pediatr Surg* 2003; 38: 102-104.
18. Weatherford DA, Stephenson JE, Taylor SM, Blackhurst D. Thoracoscopy versus toracotomy: indications and advantages. *Ann Surg* 1995; 61:83-86