

# Tratamiento de la traqueobroncomalacia grave con prótesis traqueobronquiales endoluminales\*

J. Antón-Pacheco Sánchez, A. García Vázquez, J. Cuadros García, I. Cano Novillo, M. Villafruela Sanz, F.J. Berchi García

*Servicio de Cirugía Pediátrica y Unidad de la Vía Aérea, Hospital Universitario «Doce de Octubre», Madrid.*

**RESUMEN:** La traqueomalacia es una entidad poco frecuente que se caracteriza por un colapso antero-posterior de la luz traqueal durante la espiración. Se presenta generalmente asociada a atresia de esófago pero también se han descrito casos de traqueomalacia primaria y secundaria a compresiones extrínsecas. En la mayoría de las ocasiones se produce una resolución espontánea del cuadro clínico y sólo un reducido grupo de pacientes precisa tratamiento quirúrgico. Cuando la corrección quirúrgica fracasa, o está contraindicada, existe la posibilidad de colocar prótesis traqueobronquiales endoluminales (PTBE), que proporcionan un soporte interno a la vía aérea.

Hemos tratado dos pacientes con cuatro PTBE metálicas expandibles: uno con traqueomalacia asociada a atresia de esófago y otro con traqueobroncomalacia secundaria a compresión extrínseca por cardiomegalia y ventilación mecánica prolongada. El resultado ha sido satisfactorio en los dos casos.

**PALABRAS CLAVE:** Traqueomalacia; Broncomalacia; Prótesis traqueobronquiales; Broncoscopia; Infancia.

## SEVERE TRACHEOBRONCHOMALACIA IN CHILDREN: TREATMENT WITH METALLIC EXPANDABLE STENTS

**ABSTRACT:** Tracheomalacia is an unfrequent disease that causes tracheal collapse during breathing. It is generally associated to esophageal atresia, but cases of primary tracheomalacia and others secondary to extrinsic compression, have also been described. Spontaneous resolution is generally the rule and only a few cases need surgical treatment. When this therapy fails or is not indicated for any reason, endoluminal tracheobronchial stents may be used.

We have treated two patients with four expandable metallic stents: one had severe tracheomalacia associated to esophageal atresia and the other tracheobronchomalacia secondary to cardiomegaly. Results have been good in both cases.

**KEY WORDS:** Tracheomalacia; Bronchomalacia; Stents; Bronchoscopy; Children.

**Correspondencia:** Dr. J. Antón-Pacheco Sánchez, Servicio de Cirugía Pediátrica Hospital Universitario «Doce de Octubre», Avda. de Córdoba, s/n., 28041 Madrid.

\*Trabajo presentado en el Congreso de la Sociedad Española de Cirugía Pediátrica. Sevilla, 2001.

Recibido: Mayo 2001. Aceptado: Octubre 2001

## INTRODUCCIÓN

La traqueomalacia (TM) fue descrita por Baxter<sup>(1)</sup> en 1963 como una entidad poco frecuente en la que la pared traqueal es anormalmente blanda. Esto se traduce en un colapso antero-posterior de la luz traqueal, durante la espiración, que puede afectar a un segmento de la tráquea, toda la tráquea e incluso los bronquios (traqueobroncomalacia) (TBM). La TM puede ocurrir de forma aislada denominándose primaria, o bien asociarse a otras patologías entre las que destaca, por frecuencia e importancia, la atresia de esófago (AE) con fístula traqueoesofágica (FTE). Otros tipos de TM secundaria son debidos a fenómenos compresivos producidos por anillos vasculares o masas mediastínicas, también se ha descrito como consecuencia de ventilación mecánica prolongada<sup>(2)</sup>. La mayor parte de los pacientes con TM se pueden tratar de forma expectante, ya que a partir del primer año de vida se produce una mejoría espontánea con desaparición de la sintomatología. El tratamiento quirúrgico o endoscópico se reserva para los casos de TM con grave compromiso respiratorio.

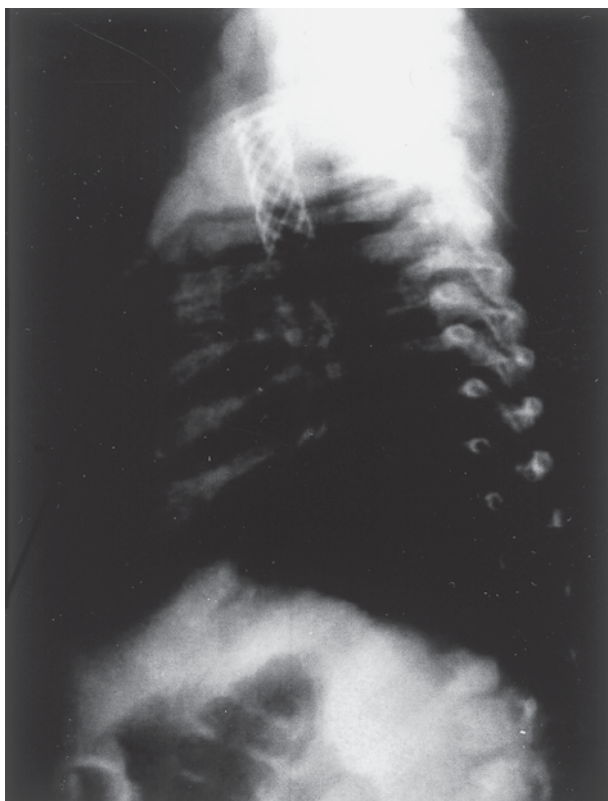
Presentamos un caso de TM y otro de TBM tratados con prótesis traqueobronquiales endoluminales (PTBE) con resultados satisfactorios.

## CASOS CLÍNICOS

En los dos casos se obtuvo el consentimiento expreso por parte de los progenitores, habiéndoles explicado exhaustivamente las características del procedimiento y las complicaciones que pudieran surgir.

### Técnica endoscópica de colocación de las PTBE

La prótesis expandible Palmaz (Johnson & Johnson Interventional Systems Co. Warren, NJ) está formada por una malla metálica de acero inoxidable en forma de tubo. Este dispositivo fue desarrollado inicialmente para el tratamiento de estenosis vasculares en adultos y posteriormente Filler y cols.<sup>(3,4)</sup> lo emplearon para tratar pacientes pediátricos con obstrucciones traqueobronquiales. Estas prótesis están dis-



**Figura 1a.** Radiografía lateral de tórax en el caso 1. Se aprecia la prótesis metálica colocada en la tráquea.

ponibles en una amplia gama de tamaños y diámetros y pueden ser introducidos en un broncoscopio rígido de tan sólo 3 mm. La prótesis se monta en su forma neutra (no expandida) sobre un balón neumático de tamaño adecuado y se introduce en el broncoscopio rígido que se encuentra ya en el interior de la tráquea. Una vez determinado el lugar exacto donde colocar el dispositivo, se dilata el balón neumático y éste a su vez expande la prótesis hasta el diámetro previamente determinado, el diseño del mismo hace que al dilatarse su longitud se acorte ligeramente. La sonda-balón se retira fácilmente al desinflarlo quedando la prótesis adaptada a la pared de la tráquea o del bronquio.

El procedimiento lo hemos realizado en el quirófano con anestesia general y con control radiológico. La selección de la prótesis y del tamaño del balón se ha realizado en base a la estimación anatómica del diámetro traqueal y la longitud del segmento malácico, determinadas en exploraciones endoscópicas previas y contrastando estos datos con la experiencia de otros autores<sup>(4-6)</sup>. Cuando más de una prótesis ha de ser colocada, como en el caso número 2 de nuestra serie, el más distal se introduce primero.

El procedimiento de retirada de la prótesis, efectuado en el caso 1, se realiza también en quirófano y en las mismas condiciones que las descritas para su colocación. Se intro-

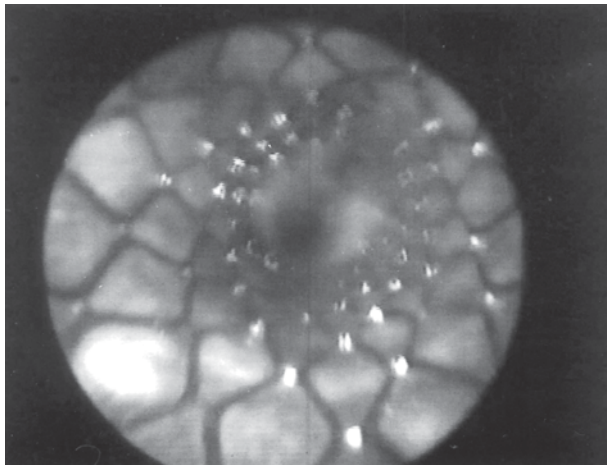


**Figura 1b.** Radiografía P-A de tórax en el caso 2. Se observan las prótesis en la tráquea y ambos bronquios principales.

duce la punta de un aspirador rígido entre el borde superior de la prótesis metálica y la pared traqueal, creando un espacio apto para el agarre firme de la prótesis con una pinza de extracción de cuerpo extraño. El dispositivo es traccionado y girado varias veces de forma que se despeg gradualmente de la pared de la vía aérea quedando en el interior de la luz y siendo extraído, junto con el broncoscopio, a continuación.

### Caso 1

Varón, RNT y PAEG, con AE tipo III intervenida en el primer día de vida. En el postoperatorio, el paciente no toleró la extubación, por lo que se realizó una broncoscopia que demostró la existencia de TM grave en la mitad inferior traqueal. A los 15 días de vida se practicó una aortopexia con buen resultado inicial pero con reaparición de la sintomatología (estridor, dificultad respiratoria, pausas de apnea) pocas semanas después. En el tránsito digestivo superior se descartó la recurrencia de la FTE pero se puso de manifiesto la existencia de reflujo gastroesofágico (RGE). Una nueva broncoscopia demostró TM residual en el tercio medio traqueal durante la espiración. Se efectuó una RNM que confirmó que la aorta ascendente y el tronco innominado se encontraban adheridos a la cara interna del esternón. A los 5 meses de vida se realizó una funduplicatura según técnica de Nissen y posteriormente, debido a la persistencia de la sintomatología respiratoria y al fracaso de la aortopexia, se colocó una prótesis traqueal endoluminal (PTE), tipo Palmaz, en la zona malácica. El procedimiento se efectuó según se ha descrito anteriormente, colocándose una prótesis de 30 mm y 9 mm de diámetro a 1,5 cm de carina (Fig. 1a). La mejoría clínica fue inmediata, dándose de alta tres semanas después del procedimiento.

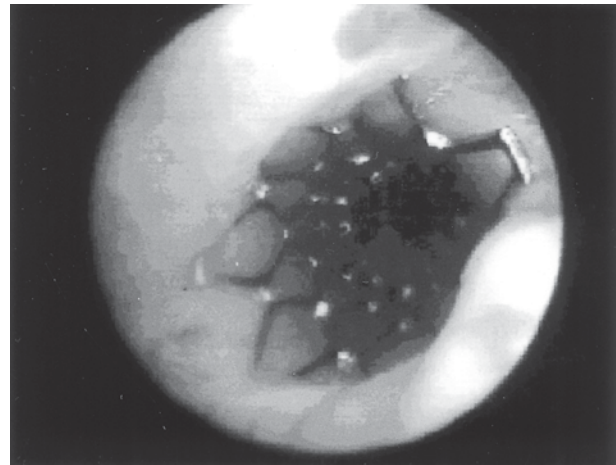


**Figura 2a.** Aspecto endoscópico de la prótesis traqueal (caso 2).

En las bronoscopias de control se observó epitelización progresiva de la prótesis, buen calibre traqueal y ausencia de migración. A partir de los dos años de edad, el paciente presentó episodios de hiperreactividad bronquial producidos por la prótesis traqueal. Por este motivo se retiró endoscópicamente 22 meses después de su colocación. La prótesis estaba firmemente adherida a la pared traqueal y se produjo un leve sangrado de la mucosa al extraerla. Cinco años y nueve meses después el paciente se encuentra asintomático.

## Caso 2

Varón, RNT y PAEG, con síndrome de Down y canal aurículo-ventricular completo. A los cuatro meses de vida se corrigió quirúrgicamente su cardiopatía congénita precisando posteriormente ventilación mecánica durante 40 días. Durante este tiempo los intentos de extubación fracasaron, por lo que se realizó una broncoscopia que demostró la presencia de TM en la mitad inferior traqueal y broncomalacia en ambos bronquios principales. Ante la imposibilidad de extubación del paciente y considerando que el tratamiento quirúrgico mediante aortopexia no solucionaría el componente broncomalácico y estaría contraindicada por la cirugía cardíaca previa, se optó por la colocación de PTBE a los 8 meses de edad. Mediante broncoscopia rígida y control radiológico se colocó una prótesis metálica expandible Palmaz, de 15 mm de longitud y 5 mm de diámetro, en el bronquio intermedio derecho. A continuación se introdujo otra prótesis de 30 mm de longitud y 10 mm de diámetro en la tráquea malácica (Fig. 2). La situación clínica del paciente mejoró pero sin conseguir una resolución completa de la sintomatología ni una extubación duradera. Tres semanas después se realizó una nueva broncoscopia rígida con objeto de dilatar a 7 mm de diámetro la prótesis en el bronquio derecho y colocar una nueva de las mismas características, longitud y diámetro en el bronquio principal izquierdo (Fig. 1b). El paciente fue extubado a los cinco días y se mantiene asintomático catorce meses después.



**Figura 2b.** Imagen endoscópica de la prótesis bronquial derecha (caso 2).

En la última broncoscopia de control, efectuada un año después de la colocación de las PTBE, se observó que las prótesis de ambos bronquios estaban perfectamente epitelizadas pero el borde inferior de la prótesis traqueal presentaba tejido de granulación más intenso sin ser obstructivo. Este tejido fue comprimido y reducido por medio de un balón neumático de 10 mm de diámetro introducido a través de un broncoscopio rígido.

## DISCUSIÓN

No se conocen con exactitud los mecanismos etiopatogénicos responsables de la TM. En la asociada a AE parece probable que el bolsón esofágico superior, al encontrarse dilatado, pudiera comprimir la tráquea intraútero y alterar su desarrollo normal<sup>(7)</sup>. Por otra parte, la presencia de una FTE disminuiría la presión intraluminal traqueal favoreciendo el desarrollo de una tráquea anormalmente flácida<sup>(8,9)</sup>. En la TM primaria es probable que exista una alteración estructural de la pared traqueal, tipo hipoplasia, displasia e incluso ausencia del soporte cartilaginoso normal. En esta forma de TM es habitual encontrar un claro aumento de la pars membranacea traqueal con deformidad de la luz en forma elíptica<sup>(10)</sup>. En este sentido, la observación clínica y endoscópica de los casos de TM nos sugiere que pueda formar parte de un espectro malformativo. En un extremo de este espectro nos encontramos anillos circulares completos sin pars membranacea produciendo una estenosis traqueal fija y en el otro extremo de la secuencia malformativa congénita, se encontraría un anillo elíptico con una pars membranacea ancha y un cociente cartilago/pars de aproximadamente 2:1. Este tipo de anillo es el que nos encontramos en los casos de TM y se comporta clínicamente como una estenosis dinámica. Entre ambos tipos de anillos, completo y elíptico, estarían toda la gama de anillos traqueales con diferentes proporciones de car-

tílagos y pars membranácea. El anillo con una relación cartílago/pars de 4:1 ocuparía una situación intermedia en el espectro malformativo y representaría la normalidad<sup>(11)</sup>. En la mayoría de los pacientes con TM el tratamiento es conservador, ya que presentan una sintomatología leve que consiste habitualmente en tos crónica, estridor con el ejercicio e infecciones respiratorias ocasionales<sup>(6)</sup>. Generalmente se produce una resolución espontánea del cuadro clínico antes de los dos o tres años de vida. Sin embargo, un pequeño grupo de pacientes presenta signos de dificultad respiratoria grave con estridor intenso, pausas de apnea repetidas e infecciones frecuentes. La broncoscopia confirma el diagnóstico y demuestra la típica protrusión de la pars membranácea dentro de la luz traqueal con la consiguiente obstrucción. Esta exploración se debe realizar con ventilación espontánea para observar la dinámica traqueal durante las fases de la respiración. En estos casos son sintomatología grave y en aquellos pacientes en los que la extubación es imposible, está indicado realizar un tratamiento quirúrgico. Previamente es necesario descartar la existencia de otras patologías que pueden producir una sintomatología similar como es el caso del RGE y la FTE recurrente<sup>(12, 13)</sup>.

La aortopexia ha sido clásicamente la técnica quirúrgica preferida por la mayoría de los autores para tratar la TM grave<sup>(11-16)</sup>. Consiste en la fijación, con puntos de sutura, de la cara anterior de la aorta ascendente a la superficie posterior del esternón que a su vez tracciona hacia delante la cara anterior traqueal evitando el colapso. El éxito inicial de esta técnica en pacientes con TM asociada a AE hizo que también se utilizará en casos de TM primaria y TBM, aunque con peores resultados<sup>(12, 17)</sup>. Algunos autores recomiendan la realización de una traqueopexia, combinada con la aortopexia, en pacientes con TM extensa<sup>(18)</sup>.

Cuando la aortopexia fracasa o está contraindicada, por cirugía cardíaca previa con abordaje medioesternal o por afectación bronquial, existe la posibilidad de colocar endoscópicamente tutores intraluminales denominados prótesis traqueobronquiales endoluminales (PTBE). La prótesis ideal debería tener las siguientes características: 1) facilidad para su colocación y retirada; 2) expansión eficaz para mantener abierta la luz de la vía aérea; 3) buena tolerancia tisular con mínima formación de tejido de granulación; 4) no interferencia con la eliminación de las secreciones traqueobronquiales, y 5) buena adherencia a la pared de la vía aérea, evitando su migración<sup>(19)</sup>. Desafortunadamente ninguna prótesis cumple todos estos requisitos en el momento actual. En el campo de la neumología de adultos, donde existe la experiencia más amplia, las prótesis más utilizadas son las de silicona (Dumon, Polyflex, Noppen)<sup>(20)</sup>. Éstas son fáciles de colocar y se puede reajustar una vez implantadas, en general son bien toleradas y se pueden retirar sin problemas. Sin embargo, tienen tendencia a migrar e interfieren con la eliminación de las secreciones traqueobronquiales<sup>(5, 20)</sup>. Por otra parte, los tamaños de estas prótesis y de los instrumentos necesarios para su

colocación son poco apropiados para su uso en niños pequeños<sup>(3)</sup>. Por este motivo se han utilizado en pacientes pediátricos prótesis metálicas expandibles<sup>(4-6, 19-22)</sup>. Estos dispositivos se introducen fácilmente en la vía aérea por medio de un broncoscopio rígido, o incluso a través de un tubo endotraqueal, no interfieren con el movimiento ciliar y, por tanto, con la eliminación de secreciones, no se mueven, ya que se incorporan gradualmente a la pared traqueal, y son dinámicos pudiéndose dilatar más si es necesario. Sus desventajas radican en que producen reacción tisular en forma de tejido de granulación y no se pueden mover ni recolocar, considerándose prótesis permanentes<sup>(4, 5, 23)</sup>. Existe una gran variedad de prótesis metálicas, algunas de ellas han sido diseñadas originalmente para su uso en vasos sanguíneos, vía biliar y digestiva. Las prótesis metálicas autoexpandibles (Gianturco, Wallstent) se han empleado en adultos con buenos resultados, pero su tamaño y el hecho de someter a la pared traqueal a una presión continua los hacen poco recomendables en niños<sup>(20, 24, 25)</sup>. El modelo de prótesis más utilizado en pacientes pediátricos es el metálico expandible con balón neumático, tipo Palmaz<sup>(3-6)</sup>. Por su reducido tamaño y la amplia gama de diámetros disponibles son los preferidos en lactantes y neonatos. Además, se pueden seguir expandiendo progresivamente, usando balones neumáticos adecuados, para adaptarse al crecimiento de la tráquea infantil. Los inconvenientes de este modelo son los comunes a las prótesis metálicas: formación de tejido de granulación y dificultad, o imposibilidad de extracción. Aunque existe muy poca experiencia con la prótesis metálica de nitinol, su consistencia más blanda y sus mejores posibilidades de extracción hacen que sea una buena alternativa a la prótesis de Palmaz<sup>(21)</sup>.

Aunque el uso de PTBE en niños es reciente y la experiencia acumulada es todavía escasa, los resultados obtenidos son prometedores<sup>(3, 6, 11, 19-22)</sup>. En pacientes seleccionados, en los que otras formas de tratamiento han fracasado, las prótesis constituyen una opción terapéutica a tener en cuenta. Existen numerosos interrogantes sobre el comportamiento de la prótesis y el crecimiento de la vía aérea con el paso del tiempo. La evolución a largo plazo determinará las posibilidades reales de esta nueva forma de tratamiento. Por otra parte, la investigación en este campo está en marcha y en un futuro próximo podremos, probablemente, contar con prótesis con mejor biocompatibilidad o incluso completamente reabsorbibles<sup>(20, 26)</sup>.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Baxter JD, Dunbar JS. Tracheomalacia. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1963;**72**:1013-1023.
2. Messineo A, Filler RM. Tracheomalacia. *Seminars in Pediatric Surgery* 1994;**3**:253-258.
3. Filler RM, Forte V, Fraga JC. The use of expandable metallic stents for tracheobronchial obstruction in children. *J Pediatr Surg* 1995;**30**:1050-1056.



4. Filler RM, Forte V, Chait P. Tracheobronchial stenting for the treatment of airways obstruction. *J Pediatr Surg* 1998;**33**:304-311.
5. Santoro G, Picardo S, Testa G, Formigari R, Marianeschi S, Catena G, Ballerini L. Balloon expandable metallic stents in the management of tracheomalacia in neonates. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1995;**110**:1145-1148.
6. Furman RH, Backer CL, Dunham ME, Donaldson J, Mavroudis C, Holinger LD. The use of balloon expandable stents in the treatment of pediatric tracheomalacia and bronchomalacia. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1999;**125**:203-207.
7. Davies MRQ, Cywes S. The flaccid trachea and tracheoesophageal congenital anomalies. *J Pediatr Surg* 1978;**13**:363-367.
8. Wailoo MP, Emery JL. Normal growth and development of the trachea. *Thorax* 1982;**37**:584-587.
9. Holinger LD, Lusk RP, Green CG. *Pediatric Laryngology and Bronchoesophagology*. Philadelphia: Lippincott-Raven, 1997; págs. 137-142.
10. Wailoo MP, Emery JL. The trachea in children with tracheoesophageal fistula. *Histopathology* 1979;**3**:329-338.
11. Antón-Pacheco JL, Villafuella M, Cuadros J. *Laringomalacia y traqueomalacia en Tratado de ORL Pediátrica*. Tomás Barberán y Bernal Sprekelsen Editores, 2000; págs. 397-402.
12. Malone PS, Kiely EM. Role of aortopexy in the management of primary tracheomalacia and tracheobronchomalacia. *Arch Dis Child* 1990;**65**:438-440.
13. Filler RM, Messineo A, Vinograd I. Severe tracheomalacia associated with esophageal atresia: results of surgical treatment. *J Pediatr Surg* 1992;**27**:1136-1141.
14. Kiely EM, Spitz L, Brereton R. Management of tracheomalacia by aortopexy. *Pediatr Surg Int* 1987;**2**:13-15.
15. Blair GK, Cohen R, Filler R. Treatment of tracheomalacia: eight years experience *J Pediatr Surg* 1986;**21**:781-785.
16. Gross RE, Neuhauser EBD. Compression of the trachea by an anomalous innominate artery: an operation its relief. *Am J Dis Child* 1948;**75**:570-574.
17. Vinograd I, Filler RM, Bahoric A. Long-term functional results of prosthetic airway splinting in tracheomalacia and bronchomalacia. *J Pediatr Surg* 1987;**22**:38-41.
18. Morabito A, MacKinnon E, Alizai E, Asero L, Bianchi A. The anterior mediastinal approach for management of tracheomalacia. *J Pediatr Surg* 2000;**35**:1456-1458.
19. Tsugawa C, Nishijima E, Muraji T, Yoshimura M, Tsubota N, Asano H. A shape memory stent for tracheobronchomalacia in children: an experimental and clinical study. *J Pediatr Surg* 1997;**32**:50-53.
20. Freitag L. Tracheobronchial stents. En: *Interventional Bronchoscopy*. Bolliger y Mathur Editores. Karger AG, 2000; págs. 171-186.
21. Nicolai T, Huber RM, Reiter K, Merkschlager A, Hautmann H, Mantel K. Metal airway stent implantation in children: follow-up of seven children. *Pediatr Pulmonol* 2001;**31**:289-296.
22. Bugmann P, Rouge JC, Berner M, Friedli B, Le Coultre C. Use of Gianturco Z stents in the treatment of vascular compression of the tracheobronchial tree in childhood. *Chest* 1994;**106**:1580-1582.
23. Nesbitt JC, Carrasco H. Expandable stents. *Chest Surg Clin N Am* 1996;**6**:305-328.
24. Remacle M, Lawson G, Minet M, Mayne A, Watelet JB, Jamart J. Endoscopic treatment of tracheal stenosis using CO2 laser and the Gianturco stent: indications and results. *Laryngoscope* 1996;**106**:306-312.
25. Carrasco C, Nesbitt J, Charnsangavej C. Management of tracheal and bronchial stenosis with the Gianturco stent. *Ann Thorac Surg* 1994;**58**:1012-1016.
26. Korpela A, Aarnio P, Sariola H, Törmälä P, Harjula A. Biodegradable self reinforced poly-L-lactide, metallic and silicone stents in the management of experimental stenosis. *Chest* 1999;**115**:490-495.