

## Síndrome postneumonectomía derecha: informe de un caso

### *Right postpneumonectomy syndrome. Case report*

Dr. Germán Bonetto<sup>a</sup>, Dra. Mónica Centeno<sup>a</sup>, Dr. Hugo Botto<sup>a</sup>, Dr. Jorge Barreta<sup>a</sup>, Dr. Marcelo Barrenechea<sup>a</sup> y Dr. Jorge Sasbón<sup>a</sup>

#### RESUMEN

El síndrome postneumonectomía es una entidad poco frecuente en pediatría. Comunicamos un caso secundario a una neumonectomía realizada por un tumor intratorácico. Niño de 4 años con antecedente de exéresis pulmonar derecha y dificultad respiratoria progresiva, con obstrucción extrínseca de la vía aérea por estructuras mediastínicas desplazadas.

Hubo intentos frustrados de tutorización con dispositivos endoluminales de la vía aérea, e imposibilidad de retiro de la asistencia ventilatoria mecánica.

Ante la imposibilidad de reposicionamiento mediastinal, se realiza puente (*bypass*) aórtico con tubo protésico, con evolución favorable y egreso hospitalario.

**Palabras clave:** síndrome postneumonectomía, *bypass* aórtico, neumonectomía.

#### ABSTRACT

Postpneumonectomy syndrome is a rare entity in children. We report a case secondary to pneumonectomy performed due to an intrathoracic tumor. A 4-year-old boy with a history of right pneumonectomy and progressive respiratory distress, with extrinsic airway obstruction due to displaced mediastinal structures. There were failure to intubate the airway with endoluminal devices and impossibility of withdrawing from mechanical ventilation. As mediastinal repositioning was not possible, an aortic bypass with a prosthetic tube graft was performed, with favorable outcome and hospital discharge.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2012.e114>

#### INTRODUCCIÓN

El síndrome postneumonectomía (SPN) es una rara complicación que ocurre después de reseca un pulmón. Se produce debido a la herniación del pulmón remanente y del contenido mediastínico en el espacio torácico vacío; existe desplazamiento y rotación de las estructuras anatómicas del mediastino. La tráquea distal se desplaza, los

bronquios primarios o los bronquios del lóbulo inferior resultan elongados y comprimidos entre la arteria pulmonar por delante y la aorta o la columna por detrás.<sup>1-3</sup> Como consecuencia de esta compresión extrínseca, el paciente presenta disnea grave y progresiva, y el cuadro puede conducir a una malacia secundaria de los cartílagos de la vía aérea.

El SPN fue inicialmente descrito exclusivamente después de la neumonectomía del lado derecho, pero se han comunicado casos después de una neumonectomía izquierda con arcos aórticos derechos y sin ellos.<sup>4,5</sup> El síndrome ocurre en todos los grupos etarios, pero es más común en niños y adultos jóvenes.<sup>2</sup>

A través de los años se han comunicado diferentes alternativas de tratamiento. Se ha intentado el reposicionamiento mediastinal para que la formación de tejido cicatrizal prevenga una recidiva.<sup>2</sup> Las tasas más bajas de recidiva se alcanzaron cuando el reposicionamiento mediastinal fue mejorado con la colocación de un dispositivo protésico en el espacio postneumonectomía para prevenir la recurrencia.<sup>2,3,6</sup> Además, los síntomas obstructivos pueden persistir después del reposicionamiento mediastinal en casos de malacia.<sup>5</sup>

Un tratamiento alternativo consiste en la colocación broncoscópica de un tutor endobronquial; no obstante, el resultado a largo plazo y la tasa de complicaciones poscolocación continúan siendo desconocidos.<sup>7</sup>

En quienes el tratamiento endoluminal con dispositivos fracasó o no se pudo realizar el reposicionamiento mediastinal, la división aórtica y el presente (*bypass*) con injerto han sido utilizadas con resultados variables.<sup>2</sup>

#### CASO CLÍNICO

Paciente de 4 años y 11 meses, nacido de un embarazo gemelar de 36 semanas de edad gestacional, con bajo peso para la edad gestacional (1825 g), internado en neonatología para recuperación nutricional, sin antecedentes familiares de relevancia. Al año de vida presentó síndrome febril y dificultad respiratoria, opacidad radiológica en hemitórax derecho, compatible con neumonía,

a. Hospital de Pediatría S.A.M.I.C. "Prof. Dr. Juan P. Garrahan". Buenos Aires. Argentina.

#### Correspondencia:

Dr. Germán Bonetto: germanbonetto@hotmail.com

*Conflicto de intereses:* Ninguno que declarar.

Recibido: 26-4-2012

Aceptado: 25-6-2012

que no se resolvió luego de tratamiento antibiótico adecuado.

Se efectuó tomografía computada (TC) de tórax que evidenció imagen hiperdensa en lóbulo medio e inferior derecho y compresión extrínseca de bronquio fuente homolateral (Figura 1).

A los 18 meses de vida se realizó toracotomía con toma de biopsia y se diagnosticó tumor miofibroblástico inflamatorio. Se realizó neumonectomía derecha más resección de cara posterior de aurícula y vena pulmonar derecha por infiltración tumoral. Luego de 30 días de internación fue dado de alta (Figura 2).

FIGURA 1. TC de tórax con imagen hiperdensa y compresión extrínseca de vía aérea

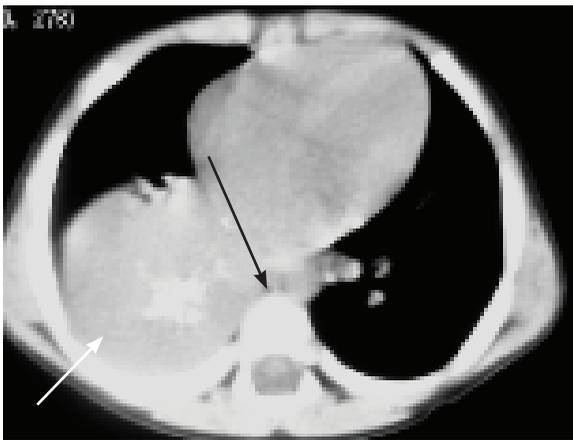
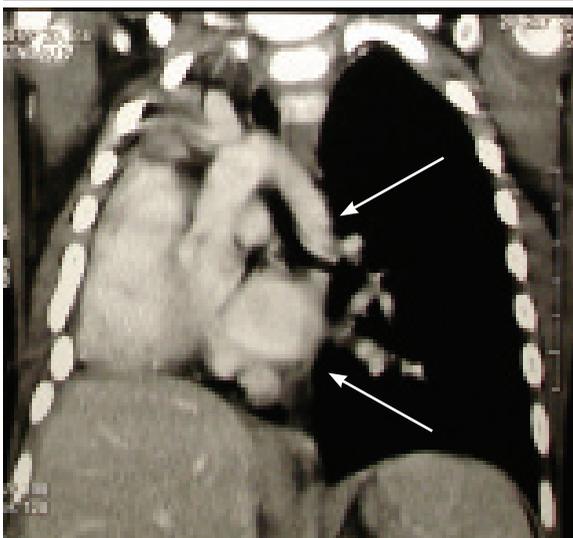


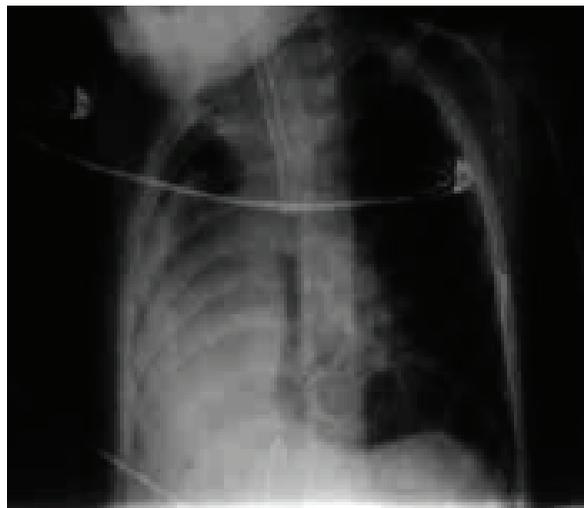
FIGURA 2. TC de tórax que evidencia desplazamiento de estructuras mediastínicas



En la evolución posterior, el paciente cursa con interurrencias respiratorias sin relevancia clínica. A los dos años de la neumonectomía las interurrencias respiratorias se hicieron más frecuentes y graves, requiriendo internaciones en varias oportunidades. La endoscopia respiratoria evidenció traqueobronquiomalacia grave con disminución del 90% del diámetro en la luz de la vía aérea y motivó la colocación de un tutor endobronquial (*stent*).

Los síntomas revirtieron inicialmente, pero como dicha mejoría no se sostuvo en el tiempo, requirió asistencia ventilatoria mecánica (AVM) y sufrió complicaciones por desplazamiento y oclusión del dispositivo, que debió ser reposicionado y reemplazado en varias oportunidades. La AVM fue difícil de realizar como consecuencia de un mecanismo valvular en el bronquio izquierdo que generaba hiperinsuflación dinámica con herniación y sobredistensión del pulmón remanente (Figura 3). Se utilizaron estrategias ventilatorias con parámetros de protección pulmonar, con bajo volumen corriente para evitar lesión pulmonar inducida por ventilación en un paciente con pulmón único. Por otra parte, la hiperinsuflación dinámica se agravaba en decúbito supino, con grave repercusión respiratoria y hemodinámica, y mejoraba en decúbito lateral derecho. Como esta estrategia ventilatoria resultó insuficiente, se optó por la ventilación selectiva del pulmón izquierdo, con disminución de los efectos producidos por el mecanismo valvular bronquial, ni complicaciones como escapes de aire en sus diferentes formas, lo cual permitió ofrecer opciones terapéuticas con el paciente en óptimas condiciones.

FIGURA 3. Rx de tórax con hiperinsuflación pulmonar



La presencia de un SPN y reiterados intentos frustrados con dispositivos endoluminales, llevaron a efectuar una angio-TC de tórax, donde se constató compresión extrínseca vascular aortica de tráquea y bronquio izquierdo (Figura 4).

En forma multidisciplinaria y bajo consentimiento informado de los padres se decidió realizar puente (*bypass*) aórtico con injerto de Hemashield® (Figura 5). El procedimiento se toleró bien y permitió el retiro de la AVM a los seis días postquirúrgicos.

FIGURA 4. AngioTc de tórax que evidencia compresión extrínseca de la vía aérea

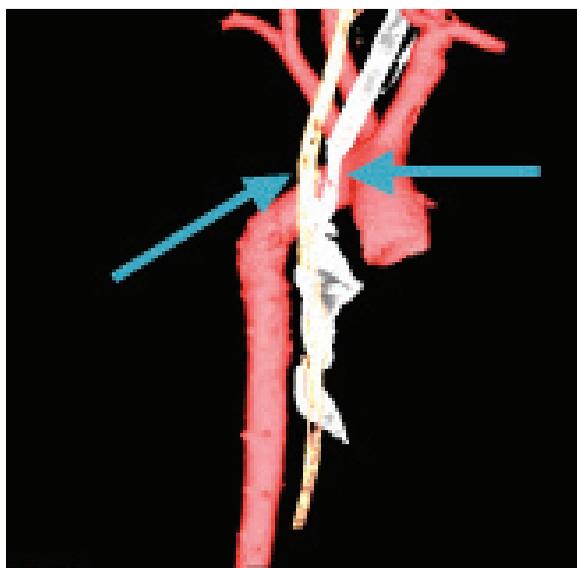
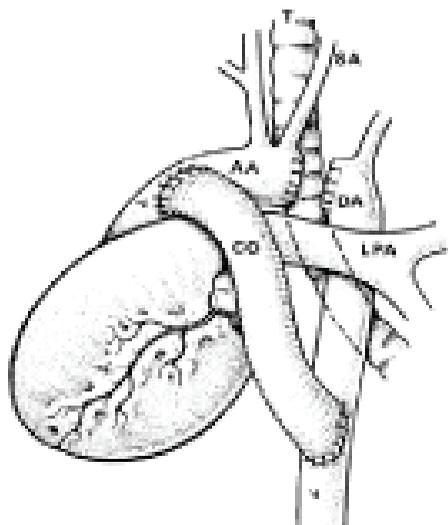


FIGURA 5. Esquema de cirugía de *bypass* aórtico



El paciente egresó del hospital sin requerimiento de oxígeno y sin síntomas clínicos obstructivos a los 18 días postquirúrgicos (Figura 6).

## DISCUSIÓN

El SPN es una complicación de la neumonec-tomía causado fundamentalmente por la herniación y desviación mediastinal dentro del espacio vacío remanente. Las vías aéreas principales son atrapadas entre la arteria pulmonar y la aorta o la columna. Esto causa compresión externa y estrechamiento bronquial.

En los niños, la incidencia ha sido estimada en 1/640 neumonec-tomías. Los síntomas comienzan gradualmente, con una demora frecuente en el diagnóstico de varios meses. Se necesita un alto índice de sospecha para el diagnóstico, debido al comienzo insidioso de los padecimientos respiratorios en una población de pacientes con función pulmonar de base reducida y frecuente enfermedad pulmonar. El diagnóstico exige una historia clínica detallada, examen físico, radiografías de tórax, tomografía computada, pruebas de función pulmonar y broncoscopia; una vez establecido, el tratamiento continúa siendo un desafío.<sup>1-4,6</sup>

Los tutores endoluminales (*stents*) de silastic tienen la ventaja de su fácil adecuación, reposición y remoción,<sup>8,9</sup> pero se han comunicado, como inconvenientes mayores, la migración y la obstrucción. Los tutores metálicos autoexpandibles tienen la ventaja de una fácil inserción, conformación a la vía aérea y estabilidad. Ventajas que pue-

FIGURA 6. Rx de tórax. Control postquirúrgico de *bypass* aórtico



den ser contrarrestadas por el desarrollo de tejido de granulación y la dificultad para retirarlo una vez que el tutor está asentado.<sup>10</sup>

El reposicionamiento mediastinal con colocación de implante ofrece una solución confiable y duradera, pero es una operación que algunos pacientes no pueden tolerar. Además, la obstrucción persistente en un 15-35% después de la reposición mediastinal debida a una malacia grave de la vía aérea se ha comunicado en algunas series.<sup>10</sup> Otros grupos han recomendado la fluoroscopia preoperatoria para predecir la traqueobronquiomalacia; pero no se halló que fuera muy específica y no se realizó en los pacientes tratados por los autores.

Horvath y cols.,<sup>11</sup> presentan el seguimiento de dos pacientes a catorce años luego de un puente aórtico con la colocación de un injerto desde la aorta ascendente a la descendente, solución que parece lógica pero de difícil realización, con buenos resultados a largo plazo de los síntomas obstructivos. La tolerancia al ejercicio y los estudios de función pulmonar dependen del estado del pulmón remanente y también del grado de ajuste estructural del bronquio y tráquea causado por la compresión antes del *bypass*.

Por lo publicado en la bibliografía de pacientes con SPN y síntomas obstructivos irreversibles y lo evidenciado en este caso clínico, donde la opción de tratamiento endoscópico fracasó y el reposicionamiento mediastinal no era factible, podemos plantear, como una buena alternativa terapéutica, al *bypass* aórtico. ■

## BIBLIOGRAFIA

1. Shepard JA, Grillo HC, McLoud TC, Dedrick CG, Spizarny DL. Right-pneumonectomy syndrome: radiologic findings and CT correlation. *Radiology* 1986;161(3):661-4.
2. Grillo HC, Shepard JA, Mathisen DJ, Kanarek DJ. Post-pneumonectomy syndrome: diagnosis, management, and results. *Ann Thorac Surg* 1992;54:638-50; discussion 650-631.
3. Valji A, Maziak D, Shamji F, Matzinger FR. Postpneumonectomy syndrome: recognition and management. *Chest* 1998;114(6):1766-9.
4. Shamji FM, Deslauriers J, Daniel TM, Matzinger FR, et al. Postpneumonectomy syndrome with an ipsilateral aortic arch after left pneumonectomy. *Ann Thorac Surg* 1996;62(6):1627-31.
5. Kelly RF, Hunter DW, Maddaus MA. Postpneumonectomy syndrome after left pneumonectomy. *Ann Thorac Surg* 2001;71:701-3.
6. Wasserman K, Jamplis RW, Lash H, Brown HV, et al. Post-pneumonectomy syndrome. Surgical correction using Silastic implants. *Chest* 1979;75(1):78-81.
7. Harney MS, Lacy PD, O'Neill S, Walsh M. Nitinol stent insertion for post-pneumonectomy syndrome. *J Laryngol Otol* 2001;115(11):938-9.
8. Nakamura Y, Ohata M, Kawabe K, Ueda A, et al. Left post-pneumonectomy syndrome successfully treated with endobronchial stent. *Inter Med* 1998;37(19):880-3.
9. Moser NJ, Woodring JH, Wolf KM, et al. Management of postpneumonectomy syndrome with a bronchoscopically placed endobronchial stent. *South Med J* 1994;87(11):1156-1159.
10. Bolliger CT, Breitenbuecher A, Brutsche M, Heitz M, Stanzel F. Use of studded Polyflex stents in patients with neoplastic obstructions of the central airways. *Respiration* 2004;71(1):83-7.
11. Horvath P, Dinwiddie R, Stark J. Successful surgical treatment of tracheal compression right pneumonectomy in infancy Long-term follow-up. *Eur J Cardio-thorac Surg* 1990;4:351-4.