



# ESTENOSIS BRONQUIAL CONGÉNITA, PAPEL DE LAS IMÁGENES EN EL DIAGNÓSTICO: PRESENTACIÓN DE UN CASO

## THE ROLE OF DIAGNOSTIC IMAGING IN CONGENITAL BRONCHIAL STENOSIS: A CASE REPORT

Juan Sebastián Toro<sup>1</sup>  
Mauricio Mejía González<sup>2</sup>  
Diana Duarte<sup>3</sup>

### PALABRAS CLAVE (DeCS)

Broncoconstricción  
Bronquios  
Tomografía computarizada por rayos X

### KEY WORDS (MeSH)

Bronchoconstriction  
Bronchi  
Tomography, X-ray computed

### RESUMEN

En este artículo se presenta el caso de un lactante menor de 2 meses de edad que a los 15 días de nacido presentó estridor y dificultad respiratoria, por lo que fue llevado a una clínica de primer nivel, donde se le realizó una radiografía de tórax en la cual se documentó la presencia de una hiperinflación del campo pulmonar derecho. Se le realizó una fibrobroncoscopia óptica, de resultado normal, y una gammagrafía de ventilación/perfusión que mostró una hipoplasia pulmonar derecha. Fue manejado con oxígeno suplementario y terapias respiratorias sin mejoría clínica, motivo por el cual fue trasladado a otra institución para un manejo especializado. Con el fin de obtener un mapa vascular prequirúrgico, se realizó una angiografía pulmonar por tomografía, unas reconstrucciones con mínima intensidad de proyección y una broncoscopia virtual multicorte. Con todo ello se documentó una estenosis del bronquio fuente derecho, producida por un repliegue de la pared bronquial y con efecto de válvula, que producía una hiperinsuflación secundaria del pulmón derecho. Estos hallazgos fueron confirmados en la cirugía correctiva. Este es un caso de gran interés porque, a pesar de lo inusual de la patología y la edad del paciente, fue posible establecer un diagnóstico certero mediante el uso de la TAC multidetector que permitió utilizar herramientas de reconstrucción tridimensional y navegación endoluminal, como la broncoscopia virtual.

### SUMMARY

This article reports the case of a lactating infant, 2 months old, who 15 days after birth presented gasping and respiratory difficulty. For this reason, he was taken to a first-degree clinic, where a thorax radiography was performed. This thorax radiography documented the presence of a hyper-inflation of the right lung. An optic fiber bronchoscopy was performed, with normal results, and a ventilation/perfusion scan which reported a hypoplasia of the right lung. It was treated with complementary oxygen and respiratory therapies without any clinical improvement. Therefore, the patient was sent to a different institution for more specialized treatment. A pulmonary angiography through a tomography, a minimum projection intensity reconstruction, and a multi-slice virtual bronchoscopy were performed in order to obtain a pre-surgical vascular map. This process showed a stenosis of the right source bronchus, caused by a fold of the bronchial wall with a valve effect, causing a secondary hyperinsuflation of the right lung. These findings were confirmed in the corrective surgery. We consider this case especially interesting because, in spite of the unusual pathology and the age of the patient, it was possible to establish a correct diagnosis through the use of the multi detector CAT scan, enabling us to use the reconstructive three-dimensional tools, as well as endoluminal navigation such as virtual bronchoscopy.

<sup>1</sup>Médico residente de Radiología, Fundación Valle del Lili-Universidad CES, Cali, Colombia.

<sup>2</sup>Médico radiólogo, Fundación Valle del Lili-Universidad CES, Cali, Colombia.

<sup>3</sup>Neumóloga pediatra, Universidad del Bosque, Fundación Valle del Lili, Cali, Colombia.

## Introducción

El desarrollo y crecimiento de la vía aérea comienza en la cuarta semana de gestación y continúa hasta los 2 años de edad. Este desarrollo se puede definir en cinco fases secuenciales: fase embrionaria, en la que se forman las yemas pulmonares y el septo traqueoesofágico; fase pseudoglandular, en la cual se forman los bronquios; fase canalicular, en la cual se organiza la red capilar y ácinos; fase sacular, encargada de formar los septos alveolares e intersticio, y por último, la fase alveolar, en la cual se terminan de madurar los alveolos primitivos (1,2). Una alteración en cualquiera de estas fases lleva a la aparición de anomalías congénitas pulmonares (2).

La estenosis bronquial se produce específicamente por una alteración en la fase pseudoglandular y generalmente se acompaña de otras malformaciones congénitas, ya sean cardíacas, esofágicas y del esqueleto; sin embargo, también puede encontrarse de manera aislada (3).

En la actualidad, la incidencia anual estimada de malformaciones pulmonares congénitas es de 30 a 42 casos por 100.000 personas. Las más frecuentes son la traqueobroncomalacia, las malformaciones congénitas pulmonares de la vía aérea (antes denominadas malformaciones adenomatoideas quísticas), el enfisema lobar congénito, el secuestro pulmonar, el síndrome de cimitarra, la atresia bronquial, el bronquio traqueal, los quistes broncogénicos y la estenosis traqueobronquial (4).

La estenosis traqueobronquial congénita se define como una disminución fija en el calibre de la tráquea o de un bronquio debido a una alteración en la etapa fetal, cuya incidencia es desconocida (5). Los sitios de mayor compromiso son principalmente la tráquea en su tercio inferior o los bronquios principales, que pueden ser producidos por causas extrínsecas o intrínsecas. El 50% de las estenosis traqueobronquiales son focales; el 30%, difusas, y el 20%, en forma de embudo (1,5).

En un estudio desarrollado en el 2007 por Heyer y colaboradores se demostró que las causas extrínsecas más frecuentes de estenosis traqueobronquial son las malformaciones vasculares, dentro de las cuales las más frecuentes son un tronco braquiocefálico inmediatamente anterior a la tráquea, doble arco aórtico, anillo vascular y arteria subclavia derecha aberrante. La causa intrínseca más frecuente fue la traqueobroncomalacia (6).

En este artículo se informan las características histopatológicas, imaginológicas y quirúrgicas de un caso de estenosis intrínseca del bronquio derecho secundario a un repliegue cartilaginoso que estrechaba la luz del bronquio principal, produciendo un fenómeno de válvula con atrapamiento de aire distal. El caso adquiere interés debido a lo infrecuente de la patología y al papel fundamental desempeñado por la radiología en el diagnóstico no invasivo del paciente.

## Presentación de un caso

El paciente es un lactante menor gemelar de 2 meses de edad sin antecedentes prenatales de importancia. Ingresó al servicio de urgencias de nuestra institución proveniente de otro centro por un cuadro clínico de un mes y medio de evolución consistente en estridor y disnea. En ese centro se practicaron varios exámenes, entre ellos una radiografía de tórax, que demostró una hiperinsuflación del campo pulmonar derecho sin otros hallazgos; una fibrobroncoscopia óptica (FBO), la cual fue interpretada como normal, y una gammagrafía de ventilación/perfusión que informó una hipoplasia pulmonar derecha, por lo cual se estableció un plan terapéutico inicial basado en lobectomía pulmonar ipsilateral.

Debido al deterioro clínico, el paciente fue remitido a nuestra institución, donde se decidió complementar el diagnóstico con la práctica de una nueva radiografía de tórax que confirmó la hiperinsuflación pulmonar derecha con desviación del cardiomedastino hacia la izquierda (figura 1), sin masas o lesiones hiliares. Basados en estos hallazgos, se recomendó la aplicación de TAC multicorte con reconstrucciones multiplanares en fase angiográfica pulmonar para evaluar un posible anillo vascular, y una broncoscopia virtual para descartar lesión intrínseca de la vía aérea.

Este examen mostró una asimetría en el volumen de ambos campos pulmonares por hiperinsuflación del pulmón derecho secundario a una estenosis bronquial derecha significativa, condicionada por un repliegue de tejidos blandos localizado en el sitio de origen de este bronquio, con efecto de válvula asociado (figura 2). No se identificaron causas extrínsecas que explicaran la estenosis, y el parénquima pulmonar no mostró formaciones quísticas ni alteraciones en las estructuras vasculares pulmonares o sistémicas. No había signos de hipoplasia pulmonar.

El paciente fue llevado a cirugía con el diagnóstico imaginológico de una estenosis intrínseca proximal del bronquio fuente derecho, en la que se confirmó un repliegue dependiente de la pared posterior de este bronquio que fue resecado, con anastomosis bronquial término-terminal. La histopatología confirmó un tejido cartilaginoso como causa de la estenosis bronquial. El paciente egresó de la institución con una mejoría completa de sus síntomas y persistió asintomático en sus controles posteriores.

## Discusión

La radiografía convencional desempeña un papel en la detección imaginológica inicial en pacientes con sospecha clínica de anomalías pulmonares congénitas. Sin embargo, en recientes años hay un aumento en el uso de la tomografía computarizada (TAC), pues no solo permite confirmar el diagnóstico, sino, a su vez, caracterizar el tipo de anomalía, planear la corrección quirúrgica en casos en los que se necesite y valorar las anomalías vasculares asociadas (4,7).



Figura 1. RX de tórax ap. Aumento de la radiolucidez y del volumen del hemitórax derecho con desplazamiento del cardiomedastino hacia el lado contralateral, sin lesiones hiliares.



Figura 2. TAC de tórax, corte a nivel de carina. Se identifica estenosis de casi toda la luz del bronquio principal derecho producida por un repliegue anterior originado de la pared bronquial (flecha negra). No se observan causas extrínsecas de la estenosis. Medio de contraste no diluido en la vena ácigos (cabeza de flecha).



Figura 3. Reconstrucción multiplanar coronal en ventana de pulmón. Hay disminución en el calibre del bronquio principal derecho (flecha) con efecto de válvula que condiciona un aumento en el volumen del pulmón derecho comparado con el contralateral.

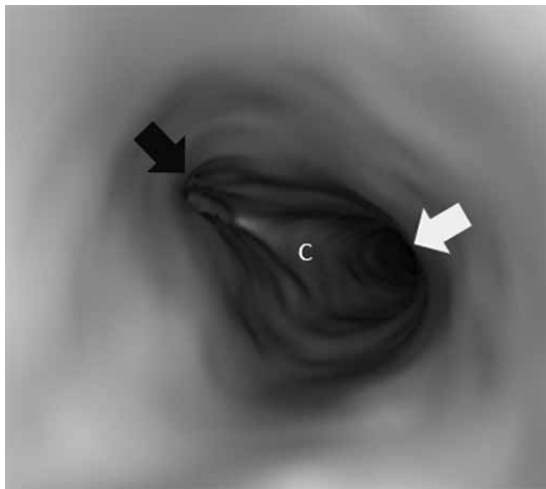


Figura 4. Broncoscopia virtual (BV) en el tercio distal de la tráquea. Inmediatamente luego de la carina (C) se observa la estenosis del bronquio derecho (flecha negra). El bronquio izquierdo (flecha blanca) no muestra alteraciones.

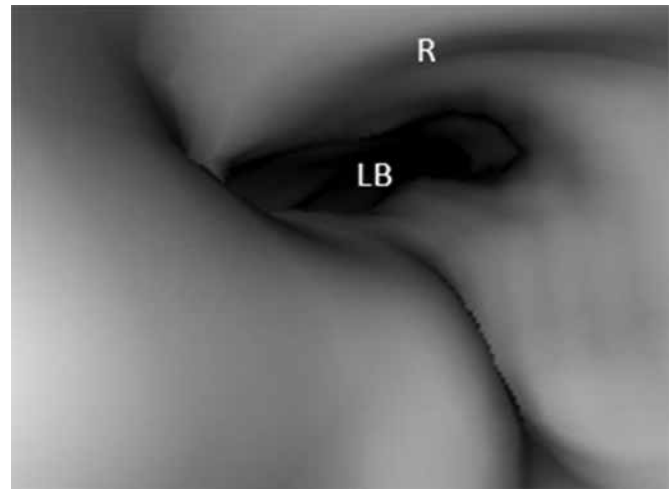


Figura 5. Broncoscopia virtual (BV) en el bronquio fuente derecho. Importante disminución de la luz bronquial (LB) por un repliegue (R) de morfología en espiral en la pared bronquial anterior que produce efecto de válvula.

Recientemente, con el desarrollo y la amplia disponibilidad de la TAC multidetector, esta modalidad ha asumido un mayor papel en la evaluación no invasiva de las anomalías congénitas pulmonares, gracias a la combinación de la alta velocidad de adquisición, alta resolución espacial, mejor calidad de reconstrucción multiplanar (MPR), reconstrucciones en tres dimensiones (3D) y capacidad de practicar broncoscopia virtual (BV) (7).

La fibrobroncoscopia óptica (FBO) es la mejor modalidad para la evaluación de lesiones endoluminales y de la mucosa de las vías respiratorias (8). La FBO generalmente aporta una triple función. En primer lugar, provee una guía exploratoria que permite la visualización anatómica y funcional de la vía aérea con la opción de practicar diagnósticos mediante la toma de muestras de tejido, la aplicación de lavado broncoalveolar y la valoración dinámica en inspiración-espira-

ción de la vía aérea; esta última función fue determinante en la causa de falsos negativos informados en la TAC multidetector con BV, que terminaron en traqueobroncomalacia, según el estudio hecho por Heyer y colaboradores (6). Adicionalmente, el procedimiento permite hacer intervenciones terapéuticas, por medio de la aspiración de secreciones y cuerpos extraños.

En los pacientes con sospecha de una malformación pulmonar congénita, la FBO es una prueba útil y puede llevar a un diagnóstico definitivo. Sin embargo, es frecuente que se requieran pruebas complementarias, tal como lo demostró un estudio reciente hecho por Wang y colaboradores, donde la FBO mostró una sensibilidad del 50% en pacientes con atresia traqueobronquial, que requirió en todos los casos estudios complementarios, como el CT de tórax, para su diagnóstico (9).

La FBO tiene limitaciones importantes, debido a que no es posible valorar estructuras por fuera de la pared bronquial, como los ganglios linfáticos mediastinales o las estructuras vasculares, y frecuentemente proporciona poca información sobre la magnitud del compromiso extraluminal o sobre las características de la vía aérea distal en una estenosis de alto grado bronquial (8). En vista de estas limitaciones, los dos exámenes pueden ser complementarios; esta afirmación puede considerarse teniendo en cuenta la alta sensibilidad (87%), especificidad (86%) y valor predictivo positivo (97%) de la TAC multidetector con BV (5).

La BV se puede practicar cuando la FBO está contraindicada o cuando sea riesgosa, como en los casos de estrechez grave de las vías respiratorias, permitiendo una evaluación no invasiva intraluminal del árbol traqueobronquial y proporcionando información sobre el compromiso extraluminal (5). Es difícil explicar los resultados equívocos de la FBO inicial; sin embargo, las causas más frecuentes de estos resultados son la poca experiencia de este procedimiento en la población pediátrica.

En nuestra institución, a pesar de tener una amplia experiencia en esta población, no se practicó la FBO debido a los hallazgos contundentes del TAC multidetector con BV, que permitió dar un diagnóstico rápido y certero debido a su gran resolución espacial, con técnicas de reconstrucción multiplanar y de navegación endoluminal, además de permitir una adecuada planeación prequirúrgica en un caso de estenosis bronquial congénita.

## Conclusión

Los pacientes con sospecha de malformaciones traqueobronquiales o pulmonares pueden beneficiarse de la tomografía multicorte con reconstrucciones endoluminales del árbol traqueobronquial (broncoscopia virtual), como herramienta no invasiva que complementa los hallazgos obtenidos con una fibrobroncoscopia óptica. Este caso ilustra cómo el método imaginológico pudo orientar el diagnóstico de una estenosis bronquial congénita en un lactante con un pulmón hiperinsuflado y estridor.

## Referencias

1. Berrocal T, Madrid C, Novo S, et al. Congenital anomalies of the tracheobronchial tree, lung, and mediastinum: embryology, radiology, and pathology. *RadioGraphics*. 2004;24:e17.
2. Deepa R, Chapman T, Ferguson M, et al. Congenital lung abnormalities: embryologic features, prenatal diagnosis, and postnatal radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 2010;30:1721-38.
3. Jaffe R. Balloon dilation of congenital and acquired stenosis of the trachea and bronchi. *Radiology*. 1997;203:405-9.
4. Lee E, Dorkin H, Vargas S. Congenital pulmonary malformations in pediatric patients: review and update on etiology, classification, and imaging findings. *Radiol Clin N Am*. 2011;49:921-48.
5. Lee EY, Greenberg SB, Boiselle PM. Multidetector computed tomography of pediatric large airway diseases: State-of-the-Art. *Radiol Clin N Am*. 2011;49:869-93.
6. Heyer C, Nuesslein T, Jung D, et al. Tracheobronchial Anomalies and Stenoses: Detection with Low-Dose Multidetector CT with Virtual Tracheobronchoscopy-Comparison with Flexible Tracheobronchoscopy. *Radiology*. 2007;242:2.
7. Lee E, Phillip M, Boisell H. Multidetector CT evaluation of congenital lung anomalies. *Radiology*. 2008;247:3.
8. Saad H. Role of virtual bronchoscopy in the evaluation of bronchial lesions: a pictorial essay. *Current problems in diagnostic. Radiology*. 2013;42:33-9.
9. Wang Y, Weimin D, Yu'e S, et al. Congenital bronchial atresia: diagnosis and treatment. *Int J Med Sci*. 2012;9:207-12.

## Correspondencia

Juan Sebastián Toro Gutiérrez  
Fundación Clínica Valle del Lili  
Avenida Simón Bolívar, carrera 98 No. 18-49  
Cali, Colombia  
juansetoro85@hotmail.com

Recibido para evaluación: 11 de septiembre de 2013  
Aceptado para publicación: 12 de diciembre de 2013