

Presencia de fístula broncopleurale en niños con patología pulmonar. Descripción de nueve casos clínicos

Héctor Navarro M.¹, Solange Caussade L.¹, Sergio Zúñiga R.¹,
Ricardo Ronco M.¹, Cristián García B.², Ignacio Sánchez D.¹

Resumen

Introducción: La Fístula broncopleurale (FBP) es una comunicación anormal que se establece entre el árbol bronquial y el espacio pleural, que se presenta en la evolución de enfermedades respiratorias graves, como complicación de intervenciones quirúrgicas del pulmón o de procedimientos con riesgo de trauma pulmonar. **Objetivo:** Presentar las características clínicas de un grupo de pacientes con FBP. **Pacientes y Método:** Se presenta una serie clínica de 9 pacientes con FBP (7 mujeres y 2 hombres) con una edad promedio de 2 años 1 mes (rango entre 7 días y 7 años). **Resultados:** En 6 pacientes, la FBP apareció en la evolución de una enfermedad respiratoria grave (pleuroneumonía complicada en 4, obstrucción bronquial severa en 1 y síndrome de distrés respiratorio agudo en 1). En los otros 3 pacientes, la FBP fue complicación de una lobectomía indicada por malformaciones pulmonares congénitas y bronquiectasias. El cuadro clínico se caracterizó por el deterioro respiratorio debido al desarrollo de un neumotórax a tensión (4 casos) o neumotórax recurrente (5 pacientes). En 5 casos la FBP se presentó con el paciente en ventilación mecánica, y en 2 pacientes con pleuroneumonía, la FBP se asoció al trauma pulmonar producido por la instalación del tubo de drenaje. El tratamiento de la FBP consistió en drenaje pleural sin aspiración y en los pacientes en ventilación mecánica se ajustaron las presiones para lograr la menor fuga posible a través de la FBP. En 2 casos se requirió ventilación de alta frecuencia. En 4 pacientes con enfermedad pulmonar grave y en 2 casos de lobectomía, la FBP se resolvió con tratamiento quirúrgico. No hubo fallecidos en esta serie. **Conclusión:** En nuestra experiencia clínica la FBP en pacientes pediátricos se presenta durante la evolución de una enfermedad pulmonar grave en ventilación mecánica, o como complicación de una cirugía pulmonar.

(Palabras clave: Fístula broncopleurale, neumotórax, lobectomía, niños). Rev Chil Pediatr 73 (6); 595-601, 2002

Bronchopulmonary fistulas in children: a description of 9 clinical cases

A bronchopulmonary fistula (BPF) is an abnormal communication between the bronchial tree and the pleural space. It's development is associated with severe lung disease,

1. Becado del Programa de Postítulo en Respiratorio Pediátrico. Departamento de Pediatría. Facultad de Medicina. Pontificia Universidad Católica de Chile.
2. Departamento de Radiología. Facultad de Medicina. Pontificia Universidad Católica de Chile.

Trabajo recibido el 14 de junio de 2002, devuelto para corregir el 7 de agosto de 2002, segunda versión el 11 de septiembre de 2002, aceptado para publicación el 25 de septiembre de 2002.

pulmonary surgery and procedures that cause lung injury. We present a serie of 9 children, 7 girls, with BPF. The average age was 2 years, range 7 days to 7 years. BPF was associated with severe lung disease in 6 children (complicated pleuro-pneumonia in 4, severe bronchial obstruction in 1 and ARDS in 1). In 3 children BPF was a complication of lobectomy due to a congenital lung malformation and bronchiectasis. Clinical presentation was recognized by the sudden onset of dyspnoea and the development of a tension pneumothorax in 4 cases and recurrent pneumothorax in 5. BPF was associated with mechanical ventilation in 5 cases and post-thoracocentesis in 2 children with pleuropneumonia. The management was pleural drainage and in patients on mechanical ventilation, adjusted pressure in order to decrease the air leak, in 2 cases high-frequency ventilation was indicated. The closure of BPF was surgical in 6 cases, 4 with severe lung disease and 2 with lobectomy. In conclusion, in our serie BPF developed in children with severe lung disease requiring mechanical ventilation or as a complication of pulmonary surgery.

(Key words: bronchopleural fistula, pneumothorax, lobectomy, children). *Rev Chil Pediatr* 73 (6); 595-601, 2002

INTRODUCCIÓN

La fístula broncopleurale (FBP) es una comunicación anormal permanente que se establece entre el árbol bronquial y el espacio pleural, que se presenta en la evolución de una enfermedad respiratoria grave como síndrome distrés respiratorio agudo, crisis bronquial obstructiva severa, absceso pulmonar o pleuroneumonía complicada^{1,2}. También se reporta la aparición de una FBP como complicación de una intervención quirúrgica del pulmón (lobectomía, neumonectomía) o de procedimientos con riesgo de trauma pulmonar como la pleurodesis, colocación de tubos de drenaje pleural o de catéteres venosos centrales¹⁻³. La mayor experiencia en FBP se presenta en adultos, donde el 60-70% se produce posterior a una cirugía resectiva de pulmón por enfermedad tumoral y se asocia a una mortalidad que oscila entre 18-50%⁴. En niños, la mayoría de los estudios corresponden a reportes de casos clínicos de prematuros en los cuales la FBP aparece como complicación de un distrés respiratorio agudo por membrana hialina que recibe apoyo con ventilación mecánica y desarrolla un enfisema pulmonar intersticial. La mortalidad en estos pacientes puede sobrepasar el 50% en aquellos prematuros de muy bajo peso de nacimiento⁵. Desde el punto de vista de su manejo, en los últimos años y con el desarrollo de la fibrobroncoscopia se ha observado una creciente experiencia en el cierre endoscópico de la FBP⁶. Además, la utilización de la ventilación me-

cánica de alta frecuencia en algunos pacientes con enfermedad pulmonar grave ha permitido mejorar el manejo del deterioro respiratorio producido por la FBP^{7,8}. El objetivo del presente estudio fue describir las características clínicas y las patologías pulmonares causales, así como el tratamiento, evolución y pronóstico de un grupo de pacientes pediátricos que desarrollaron una FBP.

PACIENTES Y MÉTODO

Se revisaron las historias clínicas de los pacientes egresados con diagnóstico de fístula broncopleurale que permanecieron hospitalizados en el Servicio de Pediatría del Hospital Clínico de la Pontificia Universidad Católica de Chile, en el período comprendido entre enero de 1990 y diciembre del 2001. Se analizó la edad cronológica, sexo, cuadro clínico, enfermedad pulmonar causal, presencia de otras patologías asociadas, el estudio de radiografía de tórax (RxTx) y la tomografía axial computada de tórax (TC). En el manejo inicial del paciente se analizó las características del drenaje pleural utilizado (con o sin aspiración) que permitió la resolución del neumotórax, así como la necesidad de ventilación de alta frecuencia. Se determinó el tratamiento (médico o quirúrgico) que logró el cierre definitivo de la FBP y la evolución y seguimiento posterior de los pacientes. En nuestro Servicio, durante el período de estudio no se realizó el cierre endoscópico de la FBP, al no disponer de

los materiales necesarios para realizar esta técnica. El diagnóstico de FBP se sospechó frente a una fuga de aire que determinaba clínicamente un deterioro respiratorio debido a la aparición de un neumotórax persistente o recurrente que incluso podía llegar a ser a tensión y que fue evidenciado en una RxTx. El diagnóstico de FBP se confirmó cuando el drenaje de este neumotórax determinaba un escape aéreo significativo y continuo en la trampa con sello de agua, que persistía después de 72 horas de instalado el tubo de drenaje pleural ^{2,19}.

RESULTADOS

Durante el período de estudio se identificaron 9 pacientes con FBP, 7 mujeres y 2 hombres. La edad promedio fue de 2 años 1 mes con un rango entre 7 días y 7 años. La FBP se presentó en la evolución de una enfermedad respiratoria grave en 6 pacientes, y entre éstos, 2 casos fueron pleuroneumonías complicadas con insuficiencia respiratoria aguda que requirieron de ventilación mecánica. En los restantes 3 pacientes, la FBP se presentó como complicación de una cirugía pulmonar (tabla 1). En 2 casos de pleuroneumonías complicadas, la FBP se asoció al trauma pulmonar producido por

la instalación del tubo de drenaje pleural. En 4 pacientes con patología pulmonar y en 1 paciente con lobectomía, la FBP se presentó mientras se encontraban con apoyo de ventilación mecánica. La presencia de una enfermedad asociada se encontró en 5 casos (tabla 1). La manifestación clínica inicial se caracterizó por dificultad respiratoria de inicio repentino o deterioro respiratorio abrupto en el ventilador asociado a la aparición de un neumotórax de grado variable, a tensión (en 5 casos), o recurrente (4 casos); en 5 pacientes se presentó en ventilación mecánica. El drenaje de este neumotórax mostraba un escape de aire continuo y significativo en la trampa con sello de agua que persistía por más de 72 horas. En la Rx Tx se evidenció un neumotórax a tensión en 5 pacientes y un neumotórax de grado variable en los otros 4 casos (figura 1). La TC de tórax mostró en 2 pacientes con pleuroneumonías complicadas al tubo de drenaje pleural en el interior del parénquima pulmonar (figura 2). En ningún paciente se realizó estudio endoscópico de la vía aérea.

El tratamiento inicial consistió en un drenaje pleural que permitiera la resolución del neumotórax y el apropiado escape del flujo aéreo de la fístula. La mayoría de los drenajes fueron colocados en trampa con sello de agua, donde se observaba el burbujeo

Tabla 1. Patología Pulmonar y Enfermedad Concomitante en FBP

Enfermedad de base	Nº pacientes
Médico:	6
Pleuroneumonía Complicada	4
Obstrucción Bronquial Severa	1
Síndrome Distrés Respiratorio Agudo	1
Quirúrgico (Lobectomía)	3
Enfisema Lobar Congénito LSI	1
Secuestro Pulmonar LII	1
Bronquiectasias LSD	1
Enfermedad Concomitante	5
Cardiopatía Congénita	2
Enfermedad Neurológica	1
Genetopatía	1
Bronquiolitis Obliterante	1

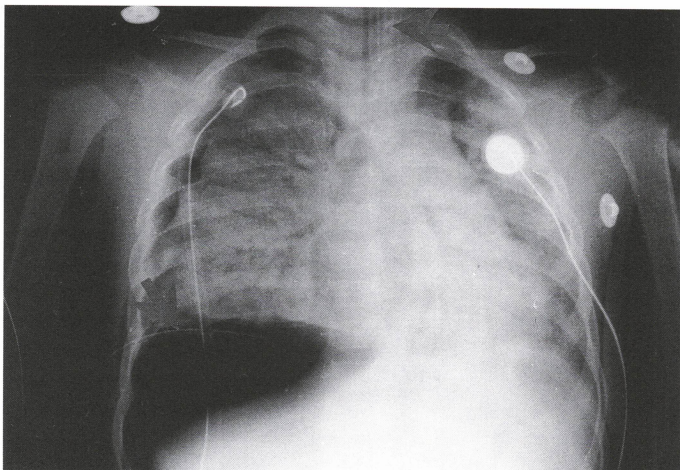


Figura 1. Radiografía de tórax con neumotórax por FBP en paciente con pleuroneumonía complicada en ventilación mecánica; flechas indican el tubo de drenaje pleural y el tubo endotraqueal.

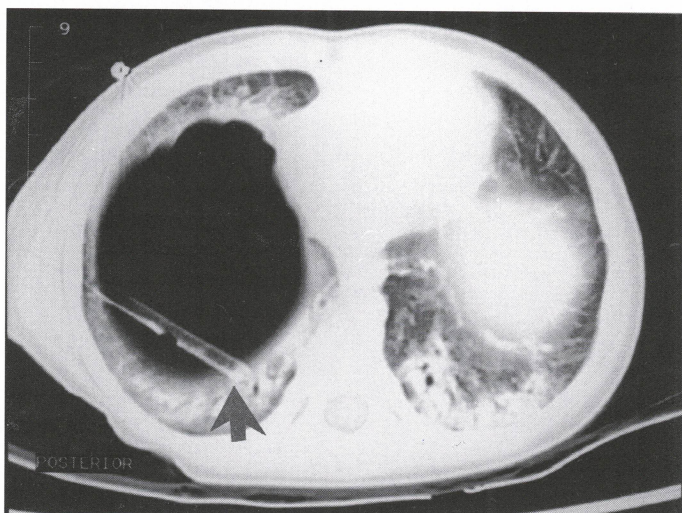


Figura 2. TC de tórax con neumotórax por FBP en paciente con pleuroneumonía complicada en ventilación mecánica; flecha indica la posición de tubo de drenaje pleural en el interior del parénquima pulmonar.

continuo. No se requirió de aspiración, excepto en 2 pacientes con neumotórax a tensión en los cuales se utilizó inicialmente aspiración con una presión negativa no superior a -20 cm de H_2O . En todos los pacientes en ventilación mecánica convencional se disminuyeron los parámetros de presión positiva (PIM y PEEP) que permitieran mantener la adecuada ventilación con la mínima fuga posible a través de la fístula. En 2 pacientes fue necesario el uso de ventilación de alta frecuencia, debido fundamentalmente a la falla respiratoria progresiva determinada por la enfermedad causal, que no respondió a la ventilación convencional. El tratamiento médico permitió el cierre de la FBP en 2 pacientes con enfermedad

pulmonar grave y en 1 caso con resección pulmonar. En los restantes 6 pacientes fue necesario el tratamiento quirúrgico, que consistió principalmente en la sutura de la FBP (tabla 2). En la evolución destacaron 2 pacientes con neumotórax enquistado que se resolvieron espontáneamente. No hubo fallecidos en esta serie.

DISCUSIÓN

La Fístula broncopleurales (FBP) es una comunicación anormal entre el árbol bronquial y el espacio pleural que se presenta en la evolución de una enfermedad respiratoria grave, posterior a una resección quirúrgica.

Tabla 2. Tratamiento Fístula Broncopleural

Tratamiento Médico	3 pacientes
Enfermedad Respiratoria Grave	2
Postcirugía Pulmonar	1
Tratamiento Quirúrgico	6 pacientes
Enfermedad Respiratoria Grave	4
Lobectomía	2
Sutura de fístula	2
Postcirugía Pulmonar	2
Sutura de fístula	2

gica del pulmón o como complicación de procedimientos con riesgo de trauma pulmonar¹⁻³. El desarrollo de una FBP determina la aparición de un neumotórax, alteración de la relación ventilación/perfusión, hipoventilación alveolar y finalmente el desarrollo o la agravación de una insuficiencia respiratoria^{2,3}. En nuestra serie de 9 pacientes, la mayoría de los casos de FBP fueron en pacientes cursando una enfermedad pulmonar grave, principalmente pleuro-neumonías complicadas que desarrollaron insuficiencia respiratoria aguda y como consecuencia, la necesidad de ventilación mecánica. La existencia de un parénquima pulmonar alterado por la inflamación y la necrosis extensa del proceso infeccioso sometido a las presiones positivas de la ventilación mecánica probablemente favorecieron el desarrollo de la FBP. En 2 de estos casos se agregó además como factor causal el trauma pulmonar de la instalación del tubo de pleurodesis, que evidenció la TC de tórax al mostrar al tubo de drenaje en el interior del pulmón. La presentación clínica más frecuente fue un repentino deterioro respiratorio debido al desarrollo de un neumotórax a tensión, que es la manifestación clínica característica de la FBP de presentación aguda^{3,4}. En los 3 casos de FBP posterior a una lobectomía, esta fue de aparición precoz, esto es, antes de los 7 días de realizada la cirugía en todos los pacientes, y se caracterizó por la presencia de un burbujeo continuo en la trampa con sello de agua asociado a dificultad respiratoria y la evidencia de un neumotórax en la RxTx. En

estudios previos, los pacientes operados presentan una FBP entre 3 y 25 días después de la cirugía resectiva y se manifiestan por una disnea de inicio brusco asociado a un neumotórax de grado variable. La mayoría de estos casos se deben a una dehiscencia de la sutura del muñón bronquial^{3,4}.

El manejo inicial consistió en el uso de un drenaje pleural no aspirativo que permitió la resolución del neumotórax y la reexpansión pulmonar, con la excepción de 2 casos en que fue necesario el uso transitorio de un drenaje aspirativo, debido a la persistencia de un neumotórax significativo. En trabajos previos se ha evidenciado que la mayoría de las fístulas se resuelven con un drenaje no aspirativo, ya que la ausencia de una presión negativa favorecería el cierre de la fístula. De ser necesario un drenaje aspirativo, se recomienda utilizar la menor presión negativa posible^{1,3,7}. La aparición de una FBP en el paciente en ventilación mecánica determinó la disminución cuidadosa de los parámetros de presión positiva en todos los casos, observándose la disminución del escape aéreo sin un concomitante deterioro de la condición respiratoria. En estudios previos^{1,3,7} se ha demostrado que la reducción de las presiones de vía aérea efectivamente disminuyen el flujo del escape aéreo, pero también reducen el volumen corriente y como consecuencia determinan una alteración de la ventilación y oxigenación del paciente. Además, el flujo aéreo que escapa a través de la FBP interfiere en el cierre del sitio de la fístula. La ventilación de alta frecuencia

permitió el manejo de 2 pacientes con insuficiencia respiratoria refractaria determinada por la enfermedad de base. En experiencias previas del manejo agudo de la FBP^{8,9} se ha descrito que la ventilación de alta frecuencia mejora el intercambio gaseoso y disminuye el escape aéreo, favoreciendo así el cierre de la fístula cuando se compara con la ventilación mecánica convencional.

En nuestro estudio, el manejo definitivo para el cierre de la FBP cuando fracasaron las medidas iniciales de drenaje no aspirativo y disminución de las presiones positivas consistió en el tratamiento quirúrgico mediante sutura del sitio de la fístula en la mayoría los pacientes. Esto hace sospechar que la mayoría de las FBP de nuestros pacientes fueron de un tamaño mediano o grande, esto es de un diámetro superior a 3 mm¹⁰. El manejo de una FBP puede ser quirúrgico (sutura, lobectomía) o mediante el sellamiento pleural con materiales administrados a través del tubo de drenaje o videotoracoscopía^{11,12}. Sin embargo, en los últimos años y con el desarrollo de la fibrobroncoscopía se ha logrado un mejor diagnóstico de la FBP a través de su visualización directa o mediante oclusión bronquial con catéteres de balón¹²⁻¹⁵ y cada vez existe mayor éxito en el cierre endoscópico de fístulas proximales o periféricas, habitualmente de pequeño tamaño, utilizando diferentes tipos de materiales¹⁶⁻²³. En ninguno de nuestros pacientes se intentó realizar este procedimiento por no tener experiencia con esta técnica. En los pacientes con FBP posterior a una cirugía resectiva de pulmón, se prefiere el cierre quirúrgico inicial, ya que la mayoría de los casos se deben a la dehiscencia de la sutura del muñón bronquial, salvo que la fístula sea pequeña o no lo permita la condición clínica del paciente, en que se ha realizado con éxito el cierre endoscópico o el sellamiento pleural^{10,18,24}.

En resumen, en nuestra experiencia clínica, la mayoría de las FBP en pacientes pediátricos se presentaron en la evolución de enfermedades pulmonares graves con falla respiratoria aguda que requieren de ventilación mecánica. La presentación clínica habitual fue el deterioro respiratorio brusco, asociado a un neumotórax de grado variable en la radiografía de tórax, cuyo drenaje determinó un escape aéreo persistente y significativo en la trampa con sello de agua.

REFERENCIAS

1. Powner D, Grenvik A: Ventilatory management of life-threatening bronchopleural fistulae. *Crit Care Med* 1981; 9: 54-8.
2. Pierson DJ, Horton CA, Bates PW: Persistent bronchopleural air leak during mechanical ventilation: a review of 39 cases. *Chest* 1986; 90: 321-3.
3. Baumann M, Sahn S: Medical management and therapy of bronchopleural fistulas in the mechanically ventilated patient. *Chest* 1990; 97: 721-8.
4. Hollaus PH, Lax F, El-Nashef BB, Hauck HH, Lucciarini P, Pridum NS: Natural history of bronchopleural fistula after pneumonectomy: a review of 96 cases. *Ann Thorac Surg* 1997; 63: 1391-7.
5. Powers WF, Clemens JD: Prognostic implications of age at detection of air leak in very low birth weight infants requiring ventilatory support. *J Pediatr* 1993; 123: 611-7.
6. Mcmanigle J, Fletcher G, Tenholder M: Bronchoscopy in the management of bronchopleural fistula. *Chest* 1990; 97: 1235-8.
7. Downs JB, Chapman L: Treatment of bronchopleural fistula during continuous positive pressure ventilation. *Chest* 1976; 69: 363-6.
8. Carlson G, Ray C, Klain M, McCormack P: High-frequency positive-pressure ventilation in management of a patient with bronchopleural fistula. *Anesthesiology* 1980; 52: 160-2.
9. Albelda SM, Hansen-Flaschen JH, Taylor E, Lanken PN, Wollman H: Evaluation of high frequency jet ventilation in patients with bronchopleural fistulas by quantitation of the airleak. *Anesthesiology* 1985; 63: 551-4.
10. Torre M, Chiesa G, Ravini M, Vercelloni M, Belloni PA: Endoscopic gluing of bronchopleural fistula. *Ann Thorac Surg* 1987; 43: 295-7.
11. Woods R, Glynn L, Andrews W, Ashcraft K: Thoracotomy for persistent bronchopleural fistula in the very on birth weight infant. *J Pediatr* 2000; 136: 832-3.
12. Berger J, Gilhooly J: Fibrin glue treatment of persistent pneumothorax in a premature infant. *J Pediatr* 1993; 122: 958-60.
13. Jishi N, Dyer D, Sharief N, Al-Alaiyan S: Selective bronchial occlusion for treatment of bullous interstitial emphysema and bronchopleural fistula. *J Pediatr Surg* 1994; 29: 1545-7.
14. Glover W, Chavis T, Daniel T, Kron I, Spotnitz W: Fibrin glue application through the flexible fiberoptic bronchoscope: closure of bronchopleural fistulas. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1987; 93: 470-2.
15. York E, Lewall D, Hitji M, Gelfand E, Modry D:

- Endoscopic diagnosis and treatment of postoperative bronchopleural fistula. *Chest* 1990; 97: 1390-2.
16. *Salmon C, Ponn R, Westcott J*: Endobronchial vascular occlusion coils for control of a large parenchymal bronchopleural fistula. *Chest* 1990; 98: 233-4.
 17. *Martin W, Siefkin A, Allen R*: Closure of a bronchopleural fistula with bronchoscopic instillation of tetracycline. *Chest* 1991; 99: 1040-2.
 18. *Wood R, Lacey S, Azizkhan R*: Endoscopic management of large, postresection bronchopleural fistula with methacrylate adhesive (super glue). *J Pediatr Surg* 1992; 27: 201-2.
 19. *Varoli F, Roviato G, Grignani F, Vergani C, Maciocco M, Rebuffat C*: Endoscopic treatment of bronchopleural fistulas. *Ann Thorac Surg* 1998; 65: 807-9.
 20. *Hollaus P, Lax F, Janakiev D, Lucciarini P, Katz E, Kreuzer A, Pridun N*: Endoscopic treatment of postoperative bronchopleural fistula: experience with 45 cases. *Ann Thorac Surg* 1998; 66: 923-7.
 21. *Baumann W, Ulmer J, Ambrose P, Garvey M, Jones D*: Closure of a bronchopleural fistula using decalcified human spongiosa and a fibrin sealant. *Ann Thorac Surg* 1997; 64: 230-3.
 22. *Sprung H, Krasma Mj, Yun X, Thomas P, Bourke D*: Treatment of a bronchopleural fistula with a fogarty catheter and oxidized regenerated cellulose (surgicel). *Chest* 1994; 105: 1879-81.
 23. *Watanabe S, Shimokawa S, Yotsumoto G, Sakasegawa K*: The use of a dumon stent treatment of a bronchopleural fistula. *Ann Thorac Surg* 2001; 72: 276-8.
 24. *Tschopp JM, Evequoz D, Karrer W, Aymon E, Naef AP*: Successful closure of chronic BPF by thoracoscopy after failure of endoscopic fibrin glue application and thoracoplasty. *Chest* 1990; 97: 745-6.

AVISO A LOS LECTORES

Se comunica que a partir del mes de julio del 2001 los becados de pediatría y profesionales de la salud pueden suscribirse a la Revista Chilena de Pediatría por un valor anual de \$37.800 previa acreditación de su condición.