

Hidatidosis pulmonar pediátrica: Reporte de 12 años de experiencia

María Stiglich W.¹, Luis Vega-Briceño¹, Manuel Gutiérrez S.³,
Pablo Trefogli R.⁴, Pascual Chiarella O.³

Resumen

La hidatidosis pulmonar (HP) en niños es una causa frecuente de derivación al Hospital Nacional Cayetano Heredia (HNCH). *Objetivo:* Revisar la experiencia del HNCH en la HP pediátrica identificando las formas de presentación clínica, los métodos diagnósticos y el tratamiento. *Material y Método:* Se realizó un estudio retrospectivo de los niños hospitalizados con HP durante el período 1990-2002. *Resultados:* Se revisaron las fichas de 33 pacientes (39 hospitalizaciones) con edades entre 4 y 13 años. El cuadro clínico y la radiografía reveló el diagnóstico en el 93% de las veces. Veintiséis niños tuvieron quistes complicados; 20 fueron operados mientras que 14 recibieron sólo albendazol. La técnica quirúrgica más empleada fue la lobectomía. Las complicaciones post-operatorias fueron: atelectasia (6), fístula broncopleurales (5) y neumonía (4); encontrando asociación con la presencia de quistes complicados o alguna resección pulmonar previa ($p < 0,05$). Se registró la ruptura de 4 quistes pulmonares en forma espontánea. El tiempo promedio de hospitalización fue de 2 semanas. Finalmente, 19 pacientes (18 operados) se encontraron libres de enfermedad. *Conclusiones:* El tratamiento quirúrgico mostró ser eficaz y seguro. No se pudo establecer comparaciones con el tratamiento farmacológico debido al poco seguimiento. Nuevas series deberán evaluar nuestros resultados.

(**Palabras clave:** Hidatidosis pulmonar, tratamiento, complicaciones, niños).

Rev Chil Pediatr 75 (4); 333-338, 2004

Pulmonary hydatid disease in children: a 12 year study

Pulmonary hydatid (PH) disease in children is a frequent cause of referral at our hospital. Patients and methods: A retrospective study was conducted in children hospitalized for PH disease in the period 1990-2002. Results: 33 children (39 hospitalizations) aged 4 to 13 years were studied. The diagnosis was based on the clinical picture and chest x-ray in 93% of cases. 26 children had complicated cysts. 20 were treated surgically and 14 solely received albendazole.

1. Médico cirujano. Grupo de Investigación de Neumología Pediátrica. Departamento de Pediatría. Universidad Peruana Cayetano Heredia. Hospital Nacional Cayetano Heredia. Lima-Perú.
2. Becado de Respiratorio Infantil. Pontificia Universidad Católica de Chile. Grupo de Investigación de Neumología Pediátrica. Departamento de Pediatría. Universidad Peruana Cayetano Heredia. Hospital Nacional Cayetano Heredia. Lima-Perú.
3. Neumólogo Pediatra. Servicio de Cirugía Pediátrica. Departamento de Pediatría. Universidad Peruana Cayetano Heredia. Hospital Nacional Cayetano Heredia. Lima-Perú.
4. Cirujano infantil. Servicio de Cirugía Pediátrica. Departamento de Pediatría. Universidad Peruana Cayetano Heredia. Hospital Nacional Cayetano Heredia. Lima-Perú.

Trabajo recibido el 10 de marzo de 2004, devuelto para corregir el 3 de junio de 2004, segunda versión el 10 de junio de 2004, aceptado para publicación el 14 de junio de 2004.

The most common surgical technique was lobectomy. Post-operative complications were: atelectasis (6), bronchopleural fistulas (5) and pneumonia (4). The development of respiratory complications was significantly associated with complicated cysts or pulmonary resection ($p < 0.05$). Four patients experienced cyst rupture. Discharge within 2 weeks was registered in 24 patients. 19 patients (18 surgical) were free of PH disease upon discharge. Conclusions: Surgical treatment proved to be safe and effective, medical therapy could not be evaluated due to poor follow-up. Newer and future studies are needed to confirm our results.

(Key words: pulmonary hydatid, treatment, complications, children).

Rev Chil Pediatr 75 (4); 333-338, 2004

INTRODUCCIÓN

La hidatidosis pulmonar (HP) es el resultado de la infección pulmonar por las formas larvianas del cestodo *Equinococcus granulosus*¹. Es frecuente en zonas agrícolas y ganaderas del Perú, habiendo sido publicado que más del 95% de los casos provienen de la sierra central y sur del país^{2,3}. De acuerdo con las estadísticas del Ministerio de Salud del año 2000, Cerro de Pasco, Huancavelica, Arequipa, Puno y Cuzco registran las tasas más altas de infección, con una máxima incidencia de 64,4 por cada 100 000 habitantes. Por otro lado, los registros sanitarios y hospitalarios en estas áreas mostraron que más del 50% corresponden a niños^{4,5}.

La forma más frecuente de infección es la infección pulmonar, constituyendo hasta el 50-70% de los casos^{6,7}. La enfermedad es inicialmente asintomática y cuando se manifiesta depende de la localización, del tamaño del quiste y de sus complicaciones. El diagnóstico de HP se basa en un cuadro clínico sugerente y en la presencia de imágenes pulmonares. Diversas clasificaciones de signos radiográficos específicos han sido publicadas para ello⁸⁻¹¹. Además se realizan pruebas serológicas como la inmunoelectroforesis, la prueba de ELISA y el Western Blot (WB) para detectar IgG e IGM específica y confirmar el diagnóstico¹².

Si bien es cierto que el manejo es esencialmente quirúrgico¹³ también se ha descrito experiencia con el uso de drogas benzimidazólicas y más recientemente con praziquantel^{14,15}. El objetivo de este estudio fue revisar la experiencia del HNCH en torno a la HP en niños, identificando las formas de presentación clínica, los métodos diagnósticos y el tratamiento específico, así como la morbilidad asociada al tratamiento establecido.

PACIENTES Y MÉTODOS

Se realizó un estudio descriptivo, retrospectivo, en donde se revisaron las fichas de los niños menores de 14 años hospitalizados en el HNCH entre 1990 y 2002 con diagnóstico de HP. Se consideró: *quiste hialino no complicado*: aquel de aspecto como nódulo esférico u oval de bordes definidos; *quiste complicado*: aquel con evidencia de alteración de la forma o consistencia (imagen heterogénea, ruptura, engrosamiento pared) o del parénquima y estructuras pulmonares adyacentes al quiste; *quiste roto*: aquel con doble arco, donde se visualiza la membrana quística a tensión, asociado a pérdida del contenido líquido del quiste; *signo del camalote*: en el cual la membrana quística flota sobre el contenido líquido remanente^{1,6,9,10}.

Se realizó un cálculo de frecuencias, estableciendo asociación entre la presentación de la enfermedad al momento del ingreso hospitalario y la evolución del paciente (días de hospitalización, estadía postoperatoria, tipo y frecuencia de complicaciones, mortalidad). Se analizó aspectos del tratamiento y su asociación con morbilidad hospitalaria. Se empleó la prueba de Chi-cuadrado o la prueba exacta de Fisher para variables categóricas o nominales respectivamente, considerándose significativas aquellas asociaciones con un valor de $p < 0,05$.

RESULTADOS

Se identificaron 38 niños con una edad promedio de 7,8 años. Se logró recuperar la ficha de 33 de ellos (19 varones), con un total de 39 hospitalizaciones. El 23% era menor de 6 años y 64% menor de 10 años. La procedencia fue rural (72%), con historia de contacto con perros (83%) y crianza de

ganado (47%). Los síntomas y signos más frecuentes fueron: tos (95%), fiebre (67%), dolor torácico (49%), hemoptisis (46%), disnea (41%), disminución de sonidos pulmonares (85%), polipnea (56%), hepatomegalia (31%). La tabla 1 muestra los hallazgos radiológicos encontrados. Se identificaron quistes únicos (64%) y múltiples (36%); ocho niños tenían enfermedad pulmonar bilateral. El 40% presentó además quistes hidatídicos hepáticos. La figura 1 muestra algunas de la radiografías de tórax obtenidas.

Se estudiaron 64 quistes hidatídicos pulmonares (figura 2), siendo el pulmón izquierdo el más comprometido: 56% y 62% de los quistes uniloculares y multiloculares respectivamente ($p = 0,86$), con un diámetro promedio de 74 mm (rango: 30-150 mm). Al momento de la admisión, 67% tuvieron radiografías de tórax con signos compatibles con quistes complicados. La mitad de

Tabla 1. Hallazgos radiológicos específicos y no específicos de los niños hospitalizados por Hidatidosis Pulmonar

	n	%
Específicos		
Quiste único	27	71
Quistes múltiples	11	29
Quiste hialino	16	42
Quiste complicado	26	67
Quistes bilaterales	8	21
Quiste roto		
+ Signo del camalote	6	15
No específicos		
Consolidación	15	39
Mediastino desplazado	6	16
Efusión pleural	3	8
Fuga de aire	1	3

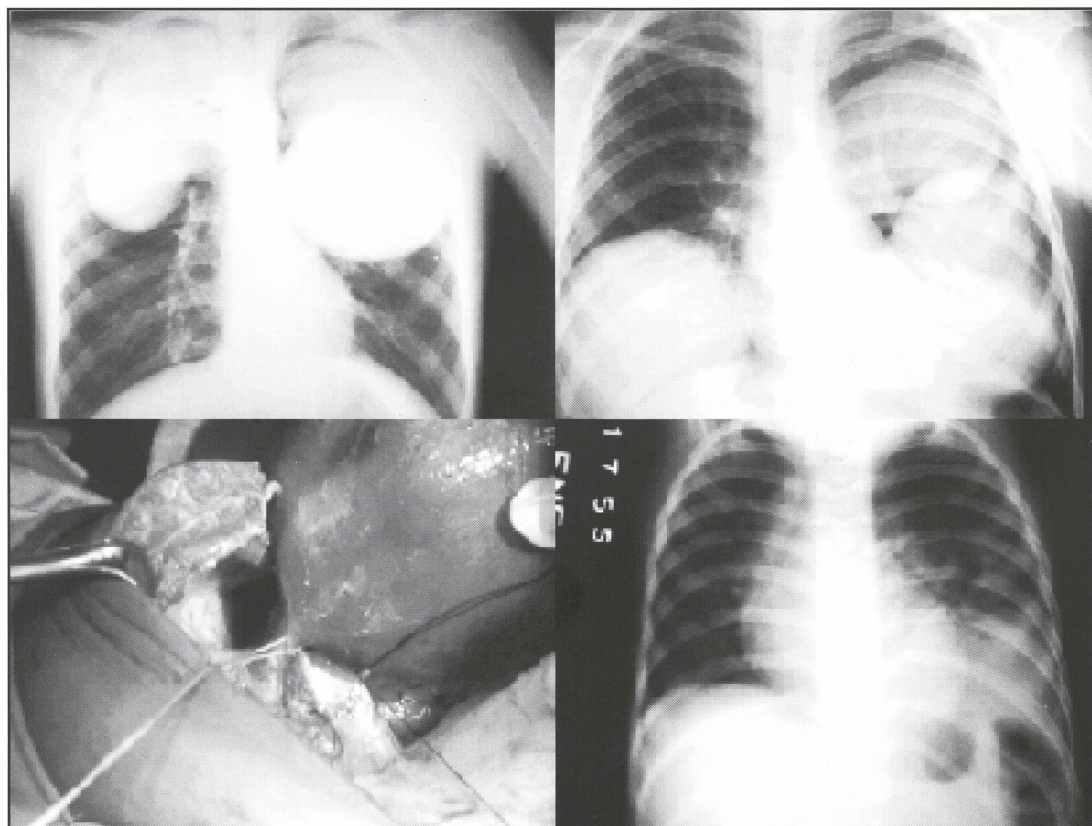


Figura 1. Radiografías pulmonares antero-posteriores y pieza intra-operatoria de pacientes con HP. (A) Quistes pulmonares bilaterales con aspecto de dos riñones. (B) HP masiva que mostró la presencia de 4 quistes. (C) Quiste hidatídico pulmonar de 17 cm de diámetro. (D) Hidatidosis pulmonar que mostró quistes complicados.

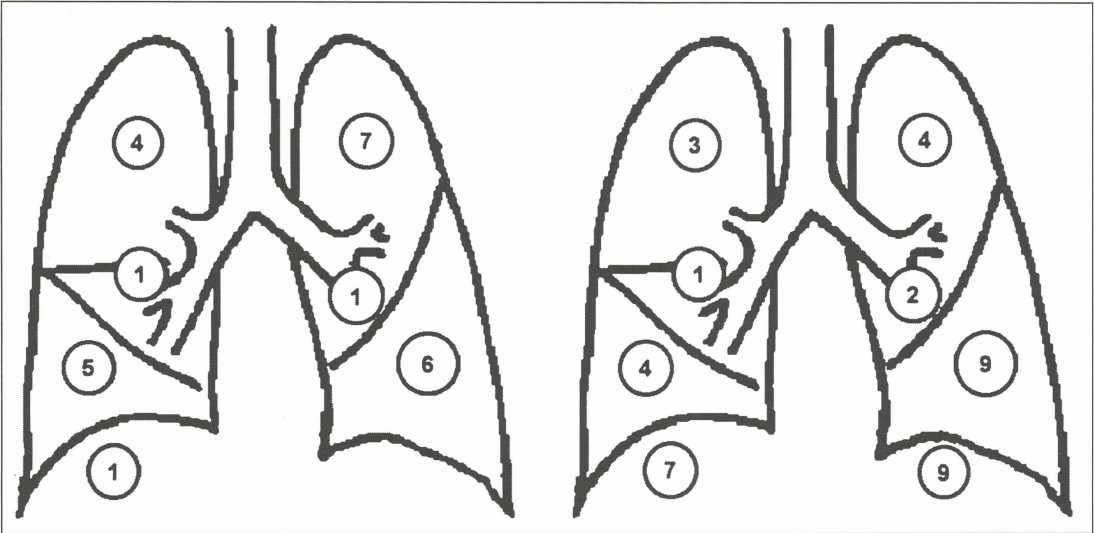


Figura 2. Distribución de quistes hidatídicos pulmonares en pacientes pediátricos con enfermedad unilobular o múltiple respectivamente. Los círculos muestran el número de quistes encontrado en cada lóbulo; aquellos por fuera del pulmón no se determinó su localización exacta.

los pacientes referidos habían recibido algún tratamiento previo; 13% de ellos habían sido operados. El diagnóstico de HP se hizo en 36 niños (92%) al momento del ingreso. La tabla 2 muestra los exámenes auxiliares solicitados con sus respectivos rendimientos.

Cinco pacientes recibieron tratamiento quirúrgico únicamente, quince médico-quirúrgico y 14 únicamente quimioterapia. Se realizaron 18 toracotomías clásicas, 3 minitoracotomías, 3 neumonectomías, 8 lobectomías y 7 quistectomías (6 con capitonaje). En todos los casos se colocó por lo menos un tubo de drenaje torácico, el cual permaneció un promedio de 3 días (rango: 1-47 días).

Los hallazgos intra-operatorios revelaron 14 niños con quistes complicados. Se registraron complicaciones post-quirúrgicas: atelectasias (6), fístulas broncopleurales (5), infección de herida (2), empiema (1). Se encontró asociación entre el desarrollo de complicaciones respiratorias y el haber tenido un quiste complicado al ingreso o haber sido sometido a una resección pulmonar ($p = 0,021$). Se registró un fallecimiento secundario a insuficiencia respiratoria durante el post operatorio.

El 74% de todos los niños recibieron albendazol. En 52% de las veces fue asociado al tratamiento quirúrgico. El 46% lo recibió por 1 mes y el 82% hasta por 2

Tabla 2. Distribución de los exámenes complementarios solicitados y sus respectivos rendimientos encontrados para el diagnóstico de Hidatidosis Pulmonar

	n de exámenes solicitados	n de pruebas positivas	Rendimiento (%)
Radiografía de tórax	38	35	92
Tomografía de tórax	18	18	100
Ecografía de tórax	12	11	91
ELISA	1	0	no aplicable
Western Blot	23	16	70
Presencia de escólices	2	2	100

meses. No se registraron reacciones adversas o muertes asociadas al uso de esta droga; sin embargo, se observó la ruptura espontánea de 5 quistes hidatídicos en 4 pacientes que recibían albendazol. El promedio de días de hospitalización en los pacientes con manejo quirúrgico y médico fue: 31 (rango: 7-89 días) y 9,5 días (rango de 4-188 días) respectivamente ($p = 0,038$). Se logró un seguimiento al alta en 21 niños con un tiempo promedio de 2 meses (rango: 1 semana-41 meses). No se detectó recurrencia de enfermedad en los pacientes controlados después del alta. Seis de los pacientes dados de alta reingresaron; 5 de ellos debido a nuevas complicaciones de sus quistes. Finalmente, 19 niños quedaron libres de enfermedad (18 del grupo quirúrgico), 3 sólo fueron mejorados de su cuadro agudo y 16 quedaron en condición indeterminada porque no se tuvo un adecuado seguimiento posterior al alta.

Discusión

Este estudio describe la experiencia de 12 años de tratamiento de HP en niños en el HNCH, en donde se observó una diversidad de tratamientos establecidos, no existiendo por lo tanto un consenso de ideas. Sin embargo, la conducta quirúrgica fue la más frecuente, con buenos resultados, baja tasa de complicaciones y finalmente brindó una cura definitiva en la mayoría de ellos; aunque la baja tasa de seguimiento no permitió establecer comparaciones con el grupo de pacientes que recibieron tratamiento médico.

Se conoce que son diversos los factores de riesgo: crianza de perros, procedencia de áreas ganaderas y condiciones precarias de higiene. Desafortunadamente los síntomas y signos respiratorios son inespecíficos, por lo que pueden ser interpretados en el contexto de un cuadro de neumonía. Sin embargo, la presencia de imágenes redondas, de aspecto quístico, asociado a uno o más factores de riesgo^{9,16} permitió un 92% de acierto al momento del ingreso por el Servicio de Urgencia.

La tomografía o resonancia magnética del tórax, permiten la visualización de quistes más pequeños, identificando otras lesiones no sospechadas y determinar la viabilidad de los quistes⁸⁻¹¹. Otros métodos, como los

serológicos (Arco V, ELISA o WB) mostraron un bajo rendimiento para HP, iguales a los reportados en la literatura: 40–70%¹². Frecuentemente la mayor distribución de quistes es en las bases, por el efecto gravedad, preferentemente el lado derecho^{6,7}. La alta frecuencia de quistes hepáticos en nuestra serie revela probablemente el grado de infestación severa.

El tratamiento de elección de la HP es el quirúrgico^{6,7,17}, por lo que se recomienda la práctica de técnicas conservadoras de parénquima pulmonar, siendo la quistectomía la forma más desarrollada¹⁸. El capitonaje es considerado como una técnica complementaria, pues se cree que se previene la formación de abscesos residuales y fístulas broncopleurales¹⁹; aunque esto ha sido cuestionado recientemente²⁰. La decisión de resección pulmonar se efectúa preferentemente durante el acto quirúrgico cuando se determina el grado y la extensión del daño pulmonar. Nosotros reportamos un número alto de quistes hidatídicos complicados. Ya que la literatura reporta cifras muy variables, es difícil establecer comparaciones en cuanto a la efectividad y seguridad^{6,17-19}. Sin embargo, no se encontró asociación entre el tamaño del quiste, el número de quistes y la resección pulmonar. La presencia de un quiste complicado o roto estuvo asociado al desarrollo de complicaciones respiratorias en el post-operatorio, por lo que consideramos necesario el uso precoz de antibióticos de amplio espectro, alertando una eventual estadía prolongada.

Un número no despreciable de pacientes recibieron albendazol junto con el tratamiento quirúrgico o en su defecto como terapia única, siendo aquellos portadores de enfermedad hepática quienes recibieron los cursos más prolongados. La quimioterapia se ofreció a aquellos niños con enfermedad pulmonar múltiple y/o bilateral que no eran tributarios de un tratamiento quirúrgico inmediato por la gran extensión de su enfermedad. Es realmente alarmante el alto grado de infestación pulmonar que hemos observado en esta serie. Desafortunadamente los pacientes que recibieron terapia médica exclusiva no tuvieron un adecuado seguimiento, por que resulta difícil establecer su eficacia. En sólo un paciente, se registró una reducción evidente del tamaño de sus quistes.

En conclusión, la HP es una condición

de importante impacto en el área de salud pública que debe de preocupar a los pediatras. Se recomienda que un vez realizado el diagnóstico se realice el tratamiento quirúrgico durante la misma hospitalización, disminuyendo así la tasa de pérdida y asegurando la cura definitiva. Se deben evaluar estrategias de tratamiento conservadoras, pero por encima de ello, una conducta de prevención primaria efectiva.

REFERENCIAS

- 1.- Gottstein B: Cystic echinococcosis of the lungs (*Echinococcus granulosus*). Clin Chest Med 2002; 23: 397-408.
- 2.- Organización Panamericana de la Salud-Oficina Sanitaria Panamericana. Perú. En: La salud en las Américas Edición 1998, Volumen II. Organización Panamericana de la Salud, Washington 1998: 455-69.
- 3.- Alarcón F, Somocurcio J, Piscoya J, Reyes N, Arévalo N, Bustamante E: Hidatidosis Pulmonar: Estudio Epidemiológico de Casos Urbanos en el Hospital Hipólito Unánue de Lima. Rev Per Epidemiol 1992; 5: 15-9.
- 4.- Rojas M: Cisticercosis e hidatidosis: metacestodiasis de perentorio control en el Perú. Rev Inv Vet Perú 2002; 1: 126-31.
- 5.- Pacora P, Má F, Vargas M: Hidatidosis infantil en el Perú. Rev Med Per 1991; 63: 21-6.
- 6.- Anadol D, Gomcen A, Koper N, Özçelik U: Hydatid Disease in Childhood: A Retrospective Analysis of 376 Cases. Pediatr Pulmonol 1998; 26: 190-6.
- 7.- Jerray M, Benzarti M, Garrouche A, Klabi N, Hayouni A: Hydatid disease of the lungs: Study of 386 Cases. Am Rev Resp Dis 1992; 146: 185-9.
- 8.- Erdem CZ, Erdem LO: Radiological characteristics of pulmonary hydatid disease in children: Less common radiological appearances. Eur J Radiol 2003; 45: 123-8.
- 9.- Tor M, Pzvaran K, Ersoy Y, et al: Pitfalls in the diagnosis of complicated hydatid disease. Resp Med 2001; 95: 237-9.
- 10.- Pedrosa I, Saiz A, Arrasola J, Ferreiros J, Pedrosa C: Hydatid Disease: Radiologic and Pathologic Features and Complications. RadioGraphics 2000; 20: 795-817.
- 11.- Koul P, Koul A, Wahid A, Mir F: CT in pulmonary hydatid disease: unusual appearances. Chest 2000; 118: 1645-7.
- 12.- Navarrete N, Jersic MI, Denis R: Comparación de tres técnicas en el diagnóstico serológico de la hidatidosis humana. Bol Chil Parasitol 1995; 50: 97-100.
- 13.- Cangir AK, Sahin E, Enon S, et al: Surgical management of pulmonary hydatid cysts in children. J Ped Surg 2001; 36: 917-20.
- 14.- Ayles HM, Corbett EL, Taylor I, et al: A combined medical and surgical approach to hydatid disease: 12 years experience at the Hospital for Tropical Diseases, London. Ann R Coll Surg Engl 2002; 84: 100-5.
- 15.- El-On J: Benzimidazole treatment of cystic echinococcosis. Acta Tropica 2003; 243-52.
- 16.- Tor M, Atasalihi A, Altuntas N, et al: Review of cases with cystic hydatid lung disease in a tertiary referral hospital located in an endemic region: a 10 years' experience. Resp 2000; 67: 539-42.
- 17.- Dogan R, Yuksel M, Cetin G, et al: Surgical treatment of hydatid disease of the lung: report on 1055 patients. Thorax 1989; 44: 192-9.
- 18.- Çelik M, Senol C, Keles M, et al: Surgical treatment of pulmonary hydatid disease in children: report of 122 cases. J Ped Surg 2000; 35: 1710-3.
- 19.- Aribas OK, Kanat F, Gormus N, Turk E: Pleural complications of hydatid disease. J Thorac Cardiovasc Surg 2002; 123: 492-7.
- 20.- Turna A, Yilmaz MA, Hacıbrahimolu, Kutlu CA, Bedirham MA: Surgical treatment of pulmonary hydatid disease: is capitonnage necessary? Ann Thor Surg 2002; 74: 191-5.