



Secuestro pulmonar asociado a malformación adenomatoidea quística. A propósito de un caso clínico

César Villamizar ¹.
Ricardo Cárdenas ².
Gustavo Rojas ³.
Amado Méndez ⁴.
Caren González ⁵.

¹Residente de Postgrado Servicio de Radiología y Diagnóstico por imágenes, Hospital Universitario de los Andes. Mérida. Estado Mérida.

²Residente de Postgrado Servicio de Radiología y Diagnóstico por imágenes, Hospital Universitario de los Andes. Mérida. Estado Mérida.

³Adjunto Servicio de Radiología y Diagnóstico por imágenes, Hospital Universitario de los Andes. Mérida. Estado Mérida.

⁴Adjunto Servicio de Radiología y Diagnóstico por imágenes, Hospital Universitario de los Andes. Mérida. Estado Mérida.

⁵Residente de Postgrado Servicio de Radiología y Diagnóstico por imágenes, Hospital Universitario de los Andes. Mérida. Estado Mérida.
carengonzalez85@hotmail.com

Correspondencia: Instituto de Medicina Tropical - Facultad de Medicina -
Universidad Central de Venezuela.

Consignado el 03 de Junio del 2007 a la Revista Vitae Academia Biomédica Digital.

RESUMEN

Las anomalías congénitas del pulmón comprenden un extenso número de patologías. Algunas se presentan como síndromes clínicos característicos, otras solo se consideran variaciones anatómicas que no requieren tratamiento. Las malformaciones pulmonares congénitas tienen una incidencia estimada del 2,2% del total de malformaciones congénitas. La malformación adenomatoidea quística es un desarrollo hamartomatoso anormal con proliferación de bronquiolos que forman quistes en vez de alvéolos; constituyen el 25% de todas las lesiones congénitas del pulmón. El secuestro pulmonar es generalmente definido como un tejido pulmonar no funcionando que no se encuentra en continuidad normal con el árbol traqueobronquial y que es irrigado desde circulación sistémica. Se presenta caso clínico de Lactante femenina de 3 meses de edad, quien presenta dificultad respiratoria, tos húmeda e hiporexia; es ingresada en centro hospitalario con diagnóstico de Infección Respiratoria Baja complicada con empiema tabicado. Paciente con antecedente prenatal de malformación adenomatoidea asociado a secuestro pulmonar izquierdo. Examen físico de ingreso: FC:122 lpm FR:40rpm P:6200gr; Palidez cutáneo mucosa. Tórax simétrico, murmullo vesicular disminuido en lóbulo inferior izquierdo, sin agregados, quejido espiratorio; ruidos cardíacos rítmicos audibles en hemitórax derecho. Exámenes de laboratorio: Hb:11,7gr/dl Hto:35,2% ; Leuc:8600cel/mm³ Neut: 24% Linf:54 Glic:97gr/dl Creat:0,3mg% pH:7,30 PO₂:80 PCO₂:23,3 HCO₃:13,3 SatO₂:97,4% Na:146mEq/l K:3,4mEq/l. Se realizan estudios imagenológicos confirmando diagnóstico prenatal. Se administra tratamiento antibiótico, se realiza ligadura de vaso aórtico aberrante. Por mejoría clínica paciente es egresada en espera de 6 semanas para reingreso con el fin de realizar lobectomía inferior izquierda.

PALABRAS CLAVE: Malformación adenomatoidea quística, secuestro pulmonar, infección respiratoria baja.

LUNG SEQUESTRATION ASSOCIATED TO CYSTIC ADENOMATOID MALFORMATION. A PROPOS OF A CLINICAL CASE

SUMMARY

Lung congenital anomalies comprise a wide number of pathologies. Some are characteristic clinical syndromes, while others are considered only anatomical variations that require no treatment. The congenital lung malformations have an estimated incidence of 2.2% of the whole congenital malformative pathology. Cystic adenomatoid malformation is an abnormal hamartomatous development with bronchiolar proliferation that forms cysts instead of alveoli; and represent 25% of all lung congenital pathologies. Lung sequestration is generally defined as non-functioning lung tissue that is in abnormal continuity with the tracheobronchial tree and that is irrigated from the systemic circulation. The clinical case refers to a feminine infant of 3 months of age, who presents respiratory difficulty, humid cough and hyporexia; she is admitted to a hospital center with diagnostic of Low respiratory Infection complicated with blocked empyema. This patient had a prenatal diagnosis of adenomatoid malformation associated to left lung sequestration. At admission the physical examination showed: FC: 122 lpm FR: 40rpm P: 6200gr; cutaneous mucosal paleness. symmetrical thorax, vesicular murmur diminished in 2/3 of the left lower hemithorax, without aggregates, expiratory groan. Rhythmic cardiac sounds. Laboratory: Hb: 11,7gr/dl Hto: 35.2%; Leuc: 8600cel/mm³ Neut: 24% Lymph: 54% Glic:97gr/dl Creat:0,3mg% pH:7,30 PO₂:80 PCO₂:23,3 HCO₃:13,3 SatO₂:97,4% Na:146mEq/l K:3,4mEq/l. Imaging studies confirming prenatal diagnostic are carried out. Antibiotic treatment is

administered; ligation of aberrant aortic vessel is performed. Owing to patient clinical improvement she is discharged pending a left lower lobectomy.

KEY WORDS: cystic adenomatoid malformation, lung sequestration, lower respiratory infection

INTRODUCCIÓN

PRESENTACIÓN DEL CASO

Las malformaciones pulmonares congénitas primarias son entidades poco comunes, con una incidencia del 2,2% sobre el total de patología malformativa congénita ⁽¹⁾.

Proceden de anomalías embriológicas en el desarrollo del intestino anterior. El secuestro pulmonar (SP) y la malformación adenomatoidea quística (MAQ), son enfermedades incluidas en la categoría de enfermedades quísticas congénitas del pulmón. La frecuente aparición de estas anomalías de forma conjunta sugiere un origen común. Se han descrito menos de 60 casos de asociación de estas dos entidades desde su descripción en 1949 ⁽²⁾. Estas enfermedades tienen manifestaciones clínicas y radiológicas similares. Puede ser difícil el diagnóstico entre ambas con hallazgos radiológicos variables; neumonía recurrente, estructura multiquística o masa homogénea, especialmente en la base pulmonar ^(3,4).

Caso clínico

Lactante femenina de 3 meses de edad, asintomática hasta la fecha; cuya madre refiere inicio de enfermedad actual el 18/02/07 cuando presenta hipertermia cuantificada en 40°C atenuada tras administración de antipirético (acetaminofen), concomitantemente presenta tos húmeda e hiporexia. Acude al centro hospitalario donde es ingresada (20/02/07) con diagnóstico de Infección Respiratoria baja: Neumonía Izquierda. Antecedentes: Producto IIG, madre de 27 años de edad con embarazo controlado, feto obtenido por cesárea segmentaría debido a presentación podálica, sin complicaciones en período neonatal. Ultrasonido prenatal realizado a las 22 semanas +6 días de gestación reportó: Secuestro pulmonar izquierdo asociado a malformación adenomatoidea, confirmado por ultrasonido Doppler (Fig 1 a,b,c,d).



Fig. 1a Ultrasonido, corte longitudinal a las 22sem+6 días, donde se evidencia imagen de secuestro pulmonar izquierdo.



Fig. 1b Ultrasonido, corte transversal a las 22 sem+6 días, donde se evidencia imágenes quísticas anecoicas múltiples acorde a malformación adenomatoidea, así como lóbulo pulmonar sugestivo de secuestro pulmonar izquierdo

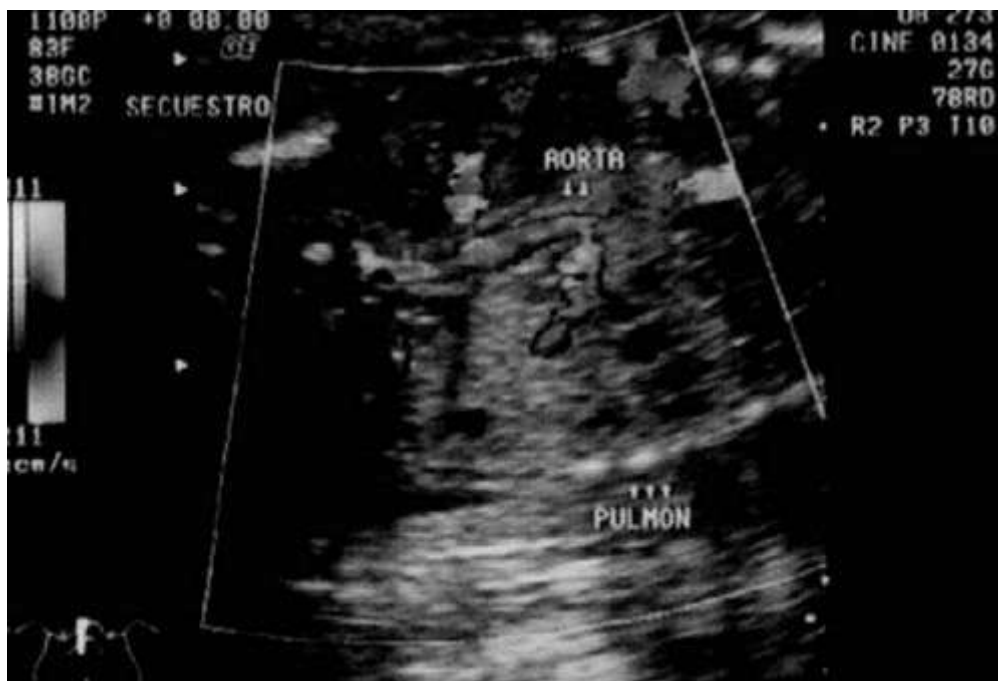


Fig. 1c Ultrasonido Doppler a las 22 sem+6días; donde se evidencia vaso aberrante aórtico que se dirige hacia lóbulo pulmonar. Así como, imágenes anecoicas redondeadas en relación a quistes.

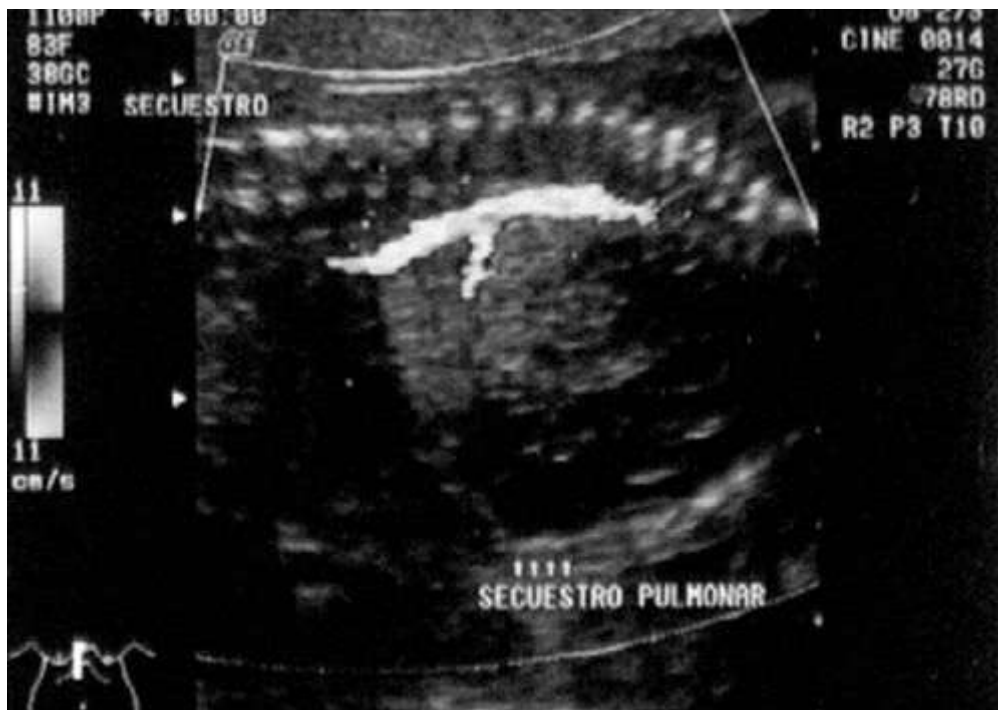


Fig. 1d Ultrasonido Doppler a las 22 sem+6días; donde se evidencia aorta con vaso aberrante que se dirige hacia lóbulo pulmonar. Así mismo imágenes anecoicas redondeadas hacia pulmón izquierdo.

Examen físico de ingreso: FC:122 lpm FR:40rpm P:6200gr. Palidez cutáneo- mucosa. Examen cardiopulmonar: tórax simétrico, murmullo vesicular disminuido en los 2/3 inferiores del hemitórax izquierdo, sin agregados, quejido espiratorio. Ruidos cardíacos rítmicos mejor audibles en hemitórax derecho.

Resultados de laboratorio al ingreso: Hb:11,7gr/dl Hto:35,2%; Leuc:8600cel/mm³ Neut: 24% Linf:54% Glic:97gr/dl Creat:0,3mg% pH:7,30 PO₂:80 PCO₂:23,3 HCO₃:13,3 SatO₂:97,4% Na:146mEq/Lt K:3,4mEq/Lt. Radiografía de tórax al momento de su ingreso; se evidencia densidad que ocupa lóbulo inferior izquierdo que borra ángulo costo diafragmático y cardiofrénico ipsilateral con múltiples imágenes quísticas. Silueta cardíaca desviada hacia hemitórax derecho. Pulmón derecho sin patología evidente (Fig 2).



Fig. 2 Radiografía de Tórax PA. Se evidencia imagen radiodensa que ocupa lóbulo de la ínsula e inferior de forma triangular, con imágenes de apariencia quísticas en su interior. Elevación de hemidiafragma izquierdo con desplazamiento silueta cardíaca hacia hemitórax derecho.

Ultrasonido torácico el día posterior a su ingreso (21/02/07) evidenció imágenes hipoecogénicas múltiples con paredes delgadas que ocupan todo el lóbulo inferior del pulmón izquierdo. Derrame pleural, ipsilateral. La silueta cardíaca está desviada hacia la derecha (Fig 3).

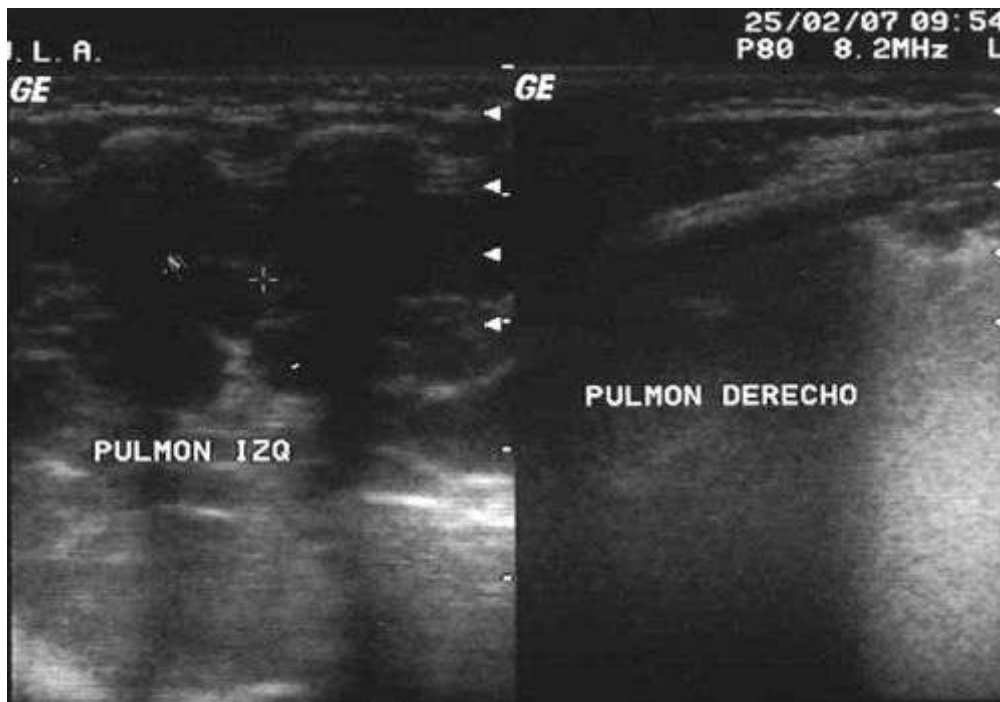


Fig. 3 Ultrasonido torácico a los 3 meses de vida. Imágenes anecoicas múltiples con paredes delgadas que ocupan todo el lóbulo inferior del pulmón izquierdo

Una muestra del líquido purulento espeso extraído del tórax, arrojó los siguientes resultados: Líquido Pleural purulento, abundantes polimorfo nucleares, cocos y bacilos Gram negativos escasos.

Se realizó tomografía computarizada de tórax, donde se evidencia masa heterogénea lobulada, de bordes irregulares con áreas quísticas, y el pulmón izquierdo y la silueta cardíaca desviada hacia la derecha (Fig. 4).



Fig. 4 Tomografía Convencional de Tórax: se evidencia masa heterogénea en lóbulo inferior izquierdo con áreas quísticas.

La paciente es valorada por el servicio de cardiología quien realiza ecocardiograma evidenciando estrechez de la arteria pulmonar derecha, así mismo, un vaso aberrante aórtico hacia el lóbulo pulmonar inferior izquierdo. Se colocó un espiral en el vaso aberrante y se realizó la dilatación de la arteria pulmonar derecha.

La paciente evolucionó satisfactoriamente, por lo cual es egresada sin complicaciones inmediatas ni mediatas. Actualmente está en espera para realizar lobectomía inferior izquierda.

DISCUSIÓN

Las malformaciones pulmonares congénitas tienen una incidencia estimada del 2,2% del total de malformaciones congénitas ⁽¹⁾. Existe un grupo de anomalías que se han denominado malformaciones broncopulmonares del intestino anterior que comprenden a los quistes broncogénicos, secuestro pulmonar, quistes de duplicación y malformación adenomatoidea quística ⁽⁵⁾. Ch'in y Tang describieron por primera vez la malformación adenomatoidea quística (MAQ) en 1949. La MAQ es un desarrollo hamartomatoso anormal de el pulmón con proliferación de estructuras quísticas semejantes a bronquios y bronquiolos (excluyen alveolos) que pueden contener tejido elástico, cartílago y músculo. Representa aproximadamente el 25% de todas las lesiones congénitas del pulmón (6,20). En 1976, Stocker y col. Clasificaron dicha anomalía en tres tipos para su análisis patológico. Tipo I consiste en quistes de 2–10 cm de diámetro y es la variedad más común. Tipo II, quistes numerosos más pequeños y uniformes de 0.5–2 cm de diámetro, y tipo III son lesiones de apariencia sólida que microscópicamente se demuestran quistes diminutos ⁽⁶⁾. Las MAQ, normalmente comunican con el árbol pulmonar normal y son irrigados por la arteria pulmonar. La presencia de una MAQ incluida en un segmento pulmonar

secuestrado es una entidad muy poco frecuente ^(6, 7,21). Aunque usualmente es unilateral, Plit et al ⁽⁶⁾ reportaron un caso de malformación adenomatoidea quística bilateral. La anomalía ha sido descrita dentro de un secuestro pulmonar (SP) por Zangwill y col. refieren que en sus 30 casos de secuestro pulmonar extralobar aproximadamente 25% contiene una MAQ tipo 2 ^(7, 8,20). Conran y Stocker refieren una coexistencia de SP extralobar y MAQ tipo 2 superior al 50% de los casos ⁽⁹⁾. Hellmuth et al ⁽¹⁰⁾ describe un ejemplo de malformación adenomatoidea quística como manifestaciones quísticas unilobular. Hallazgos tomográficos de MAQ en coexistencia con SP fueron reportados en siete casos por Patz et al, seis pacientes presentaron neumonía recurrente y uno presentó neumotórax recurrente ⁽¹¹⁾. Las características tomográficas consisten principalmente en masas quísticas complejas en adición a las neumonías. En su revisión sobre lesiones congénitas que simulan neoplasias en el adulto, Raymond et al describe una aglomeración de quistes múltiples bien circunscritos en el lóbulo inferior, difícil de distinguir de un secuestro ⁽¹²⁾. El trastorno es usualmente diagnosticado en el período neonatal y en los primeros dos años de vida. Es muy raro diagnosticarlo en el adulto. Las manifestaciones clínicas más habituales de la malformación adenomatoidea quística fuera del período neonatal son las infecciones respiratorias de repetición. El diagnóstico de esta malformación se hace con frecuencia en el período prenatal mediante ecografía fetal ^(13,14,). Esta exploración permite el diagnóstico entre las 18 y las 24 semanas de gestación, lo cual permite el tratamiento precoz, que puede ser intraútero o neonatal inmediato. El tratamiento puede realizarse intraútero antes de las 32 semanas, evitando la compresión mediastínica, corrigiendo la hipoplasia pulmonar, la hidropesía y evitando la muerte; consiste en la punción del quiste, derivación toracoamniótica o lobectomía. En el período posnatal, el tratamiento de elección es la toracotomía con resección del lóbulo afectado ^(14,28). El Secuestro Pulmonar (SP) es una rara anomalía que constituye el 0.15% -6.4% de todas las malformaciones pulmonares congénitas.

Diversas teorías etiológicas han intentado explicar el origen embriológico de los SP. La teoría más frecuentemente aceptada es la insuficiente velocidad en el desarrollo de la arteria pulmonar para suplementar crecimiento al pulmón, por este motivo, un segmento adquiere vascularización desde la aorta. El SP consiste en la exclusión de un segmento del parénquima pulmonar de su continuidad con el árbol bronquial que es irrigado desde circulación sistémica ⁽²⁰⁾. Pryce usó por primera vez el término secuestro pulmonar en 1946 y luego clasificó la lesión como intralobar y extralobar basado en el patrón morfológico de la secuestración ⁽¹⁵⁾.

El secuestro pulmonar intralobar representa el 75% de todos los secuestros pulmonares. Consiste en un segmento anormal de tejido pulmonar que comparte la pleura visceral de un lóbulo pulmonar normal y que carece de comunicación normal con el árbol traqueobronquial, aunque puede conseguirse cantidad variable de aire dentro del tejido anómalo. Casi siempre ocurre dentro del lóbulo inferior, más frecuente en el pulmón izquierdo que en el derecho ⁽¹⁵⁾. Las principales características patológicas son inflamación crónica, cambios quísticos y fibrosis. Las ramas aórticas anómalas que irrigan la lesión son característicamente localizadas dentro del ligamento pulmonar inferior. La gran mayoría de los secuestros intralobares son drenados por venas pulmonares normales dentro de la aurícula izquierda ⁽¹⁶⁾. Radiológicamente, muchas veces se presenta como una neumonía o atelectasia recurrente que afecta siempre la misma

localización. Afecta con mayor frecuencia el lóbulo inferior del pulmón izquierdo, segmento basal posterior. Tanto el ultrasonido (US) como la tomografía computarizada (TC), pueden mostrar una masa heterogénea, con áreas quísticas y niveles hidroaéreos en su interior. Al igual que en la forma extralobar es importante demostrar la irrigación arterial sistémica, para lo cual se utilizan los mismos métodos antes descritos ⁽¹⁷⁾. Además, el US hace posible el diagnóstico o la sospecha de enfermedad pulmonar quística congénita in útero. El secuestro pulmonar debería ser considerado en todo neonato con masa abdominal superior o suprarrenal, principalmente si la masa ha sido detectada antenatalmente.

(17,2)

El secuestro pulmonar extralobar es una entidad completamente distinta y representa el 25% de todos los secuestros pulmonares. La malformación es diagnosticada durante los primeros días o semanas de vida del paciente y, menos frecuentemente, en la infancia tardía o niñez temprana. Consiste en un lóbulo separado, accesorio, de tejido pulmonar que es envuelto en su propia pleura.

Aunque típicamente se encuentra en el ángulo costo diafragmático posterior entre el lóbulo inferior y el hemidiafragma (63% - 77% de los casos), los tejidos anómalos pueden ocurrir en el mediastino, en el pericardio y dentro o por debajo del hemidiafragma. ^(17,24) Histológicamente parece parénquima pulmonar normal, aunque todas las estructuras están dilatadas. Un corte anatómico muestra una lesión firme, homogénea, y puede contener áreas quísticas. Si los tejidos anómalos contienen aire, uno puede inferir la persistencia de una evidente conexión con el tracto gastrointestinal. Esta inusual característica permite clasificar el secuestro como una "malformación broncopulmonar del intestino anterior". En el 80% de los casos se encuentra irrigada por arterias anómalas que se originan directamente de la aorta torácica o abdominal. El drenaje venoso es usualmente sistémico en el 80% de los casos, a través, de la ácigos y hemiácigos o la vena cava superior ^(17,18).

Radiológicamente el secuestro extralobar se presenta como una masa, generalmente en la base de un hemitórax, que en el ultrasonido aparece como sólida, con mayor frecuencia ecogénica. La tomografía computada puede o no aportar mayor información, muestra una masa homogénea, sólida, que se impregna con el uso de medio de contraste endovenoso y rara vez contiene aire. El principal elemento diagnóstico consiste en demostrar su irrigación arterial sistémica, lo que muchas veces se logra con US-Doppler color, lo que también se puede demostrar con resonancia magnética. Sin embargo, es la aortografía el examen que lo confirma con mayor certeza ^(19,20).

En cuanto a la presentación clínica, no son frecuentes los síntomas neonatales y cuando ocurren generalmente es porque el secuestro es extralobar y se asocia con otras anomalías congénitas. A medida que el niño crece, puede presentarse como infecciones pulmonares a repetición o bien permanecer asintomático. Las recidivas de procesos infecciosos en el mismo territorio pulmonar pueden llegar a formar abscesos y complicarse con derrame pleural o pnoneumotorax. ^(19, 25,26) Además se han reportado casos de tos crónica, hemoptisis y hemotórax, que pueden llegar a ser masivas. ⁽²⁷⁾ Se asocian anomalías congénitas en un 50% de los casos (principalmente la variedad

extralobar) entre las que se encuentran: fístulas traqueoesofágicas o gástricas, anomalías diafragmáticas, quistes pericárdicos, duplicación del colon o íleon Terminal y anomalías de vértebras cervicales. Por tal razón, esta variedad se diagnostica en los primeros años de vida. (26,27) La presencia conjunta de las MAQC y SP indica un defecto común en el desarrollo embriológico.

Por este motivo, ante el diagnóstico de una de las entidades parece importante el despistaje en busca de la otra, mediante el uso de ecografía en la etapa fetal, del TC y angioRM en etapa neonatal. Estas malformaciones pueden ser identificadas desde la semana 16 de gestación, permitiendo el seguimiento. Los SP diagnosticados antenatalmente involucionan espontáneamente hasta en un 34% y el 15-50% de MAQC disminuyen de tamaño durante la gestación (21,22). Adzick y col, han relacionado el pronóstico global de estas malformaciones con el tamaño de la masa pulmonar, la presencia de hidrops y sus efectos fisiopatológicos secundarios (grado de distrés, etc.) al nacimiento. (20,23) El tratamiento del SP es generalmente quirúrgico; las lesiones extrapulmonares usualmente pueden ser extraídas sin alterar los lóbulos restantes, el secuestro intrapulmonar es resecado por lobectomía. Existe también la posibilidad de cirugía fetal en casos seleccionados. (20,24)

REFERENCIAS

1. Evrard V, Ceulemans J. Congenital parenchymatous malformations of the lung. *World J. Surg* 1999; 23:1123-32.
2. Chin KY, Tang MY. Congenital adenomatoid malformation of one lobe of a lung with general anasarca. *Arch Pathol* 1949;48: 221-9.
3. Hernanz-Schulman M. Cysts and cystlike lesions of the lung. *Radiol Clin North Am* 1993; 31:631-649.
4. Rosado-de-Christenson ML, Stocker JT. Congenital cystic adenomatoid malformation. *RadioGraphics* 1991; 11:865-886.
5. Sánchez A, Somoza I, Liras J, Mèndez R, Tellado M, Rios J, Pais E, Vela D. Malformación adenomatoidea quística congènita associada a secuestro pulmonar. Presentaciòn de dos casos clínics. *Cir Pediatr* 2005; 18:39-41.
6. Plit ML, Blott JA, Lakis N, Murray J, Plit M. Clinical, radiographic and lung function features of diffuse congenital cystic adenomatoid malformation of the lung in an adult. *Eur Respir J* 1997; 10:1680-1682
7. Zangwill BC, Stocker JT. Congenital cystic adenomatoid malformation within an extralobar pulmonary sequestration. *Pediatr Pathol* 1993; 13:309-315.
8. Fraggetta F, Cacciaguerra S, Nash R, Davenport M. Intra-abdominal pulmonary sequestration associated with congenital cystic adenomatoid malformation of the lung: just an unusual combination of rare pathologies? *Pathol Res Pract* 1998; 194:209-211.
9. Conran RM, Stocker JT. Extralobar sequestration with frequently associated congenital cystic adenomatoid malformation, type 2: report of 50 cases. *Pediatr Dev Pathol* 1999; 2:454-463.
10. Hellmuth D, Glerant JC, Sevestre H, Remond A, Jounieaus V. Pulmonary adenomatoid malformation presenting as unilobar cysts in an adult. *Res Med* 1998; 92:1364-1376

11. Patz EF, Jr, Müller NL, Swensen SJ, Dodd LG. Congenital cystic adenomatoid malformation in adults: CT findings. *J Comput Assist Tomogr* 1995; 19:361-364
12. Raymond GS, Miller RM, Müller NL, Logan PM. Congenital thoracic lesions that mimic neoplastic disease on chest radiographs of adults. *AJR Am J Roentgenol* 1997; 168:763-76.
13. Tabuenca Y, Rite S, Cocolina J, Bueno C, Rebage V, Esteban Ibarz JM, et al. Malformación quística adenomatoidea congénita pulmonar de diagnóstico antenatal. A propósito de dos observaciones. *An Esp Pediatr* 1998; 49:631-4.
14. Peña S, Ruiz M, Kareaga N, García N, Iturrioz A, Tomás A. Malformación adenomatoidea quística. Diagnóstico diferido de una anomalía congénita. *Anales de Pediatría* 2003; 59:396-399.
15. Frazier A, Rosado de Christensen M, Stocker J, Tompleton P. Intralobar sequestration: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 1997; 17: 725-45.
16. Ayala D, Dinamarca O, García B. Caso clínico-radiológico para diagnóstico secuestro pulmonar. *Rev. Chil. Pediatr.* 1999;70n.6.
17. Rosado de Christenson ML, Frazier AA, Stocker JT, Templeton PA. Extralobar sequestration: radiologic-pathologic correlation. *RadioGraphics* 1993; 13:425-441.
18. Gerle RD, Jaretzki A, Ashley CA, Berne AS. Congenital bronchopulmonary-foregut malformation: pulmonary sequestration communicating with the gastrointestinal tract. *N Engl J Med* 1968; 278:1413-1419.
19. Fraser RG, Pare JAP, Pare PD, Fraser RS, Genereux GP. Pulmonary abnormalities of developmental origin. In: Fraser RG, Pare JAP, Pare PD, Fraser RS, Genereux GP, eds. *Diagnosis of diseases of the chest*. 3rd ed. Philadelphia, Pa: Saunders, 1989; 695-773.
20. Sánchez A, Somoza I, Lira J, Méndez R, Tellado M, et al. Malformación Adenomatoidea Quística asociada a Secuestro Pulmonar. Presentación de dos casos clínicos. *Cir. Pediatr* 2005;18:39-41.
21. Stocker J, Maxwell J. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. Classification and morphologic spectrum. *Hum Pathol* 1977;8:155-71.
22. Bratu I, Flageole H. The multiple facets of pulmonary sequestration. *J Pediatr Surg* 2001;36:784-90.
23. Adzick N, Harrison M. Fetal lung lesions: Management and outcome. *Am J Obstet Gynecol* 1998;179:884-9.
24. Buntain W, Wooley M, Mahour G. Pulmonary sequestration in children: a twenty-five year experience. *Surgery*. 1977; 81:413-20.
25. Mazlumian M, San Román J, Rubio R, Galuzzo L, De Dávila MTG: Ateneo radiológico. *Rev Hosp. Ital, Bs Aires* 2002;22:2-3.
26. Boix-Ochoa J, Peiro J: Bases de las malformaciones broncopulmonares congénitas. *Cir Pediatr* 1994;7:58-65.
27. Ilias L, Palffy G, Szonyi P, Taller A: Massive Haemothorax caused by intralobar pulmonary sequestration. *Orv Hetil* 1996;137:1263-5.
28. Adzick N, Harrison M. Management of the fetus with a cystic adenomatoid malformation. *World J Surg* 1993;17:342-349. Kravitz R. Congenital malformation of the lung. *Pediatr Clin North Am* 1994;41:453-472.