

CASO CLÍNICO

INTUBACIÓN ENDOTRAQUEAL INTRAPARTO EN UN FETO CON HERNIA DIAFRAGMÁTICA. A PROPÓSITO DE LA PRIMERA CIRUGÍA FETAL EXIT (*EX-UTERO INTRAPARTUM TREATMENT*) EN EL PERÚ

Walter Ventura Laveriano^{1,a,b}, Erasmo Huertas Tacchino^{1,a}, Oscar Limay Ríos^{1,a}, Mario Zárate Girao^{1,a}, Walter Castillo Urquiaga^{1,a}, Verónica Coaquira Quenta^{1,c}, Mary Silva Oporto^{1,d}, Marco Quispe Villanueva^{2,e}, Saulo Molina Giraldo³

¹ Instituto Nacional Materno Perinatal, Lima, Perú

² Universidad Nacional Mayor de San Marcos. Lima, Perú

³ Unidad de Medicina Materno Fetal y Fetoscopia, Clínica de la Mujer, Clínica Colsubsidio, Hospital de San José; Fundación Universitaria de Ciencias de la Salud, Bogotá, Colombia

^a Médico Ginecólogo Obstetra del Servicio de Medicina Fetal

^b Past Fellow Harris Birthright Research Centre for Fetal Medicine, King's College Hospital, Londres, Reino Unido

^c Médico Anestesiólogo

^d Médico Neonatólogo

^e Médico Residente de Ginecología y Obstetricia; f Especialista en Medicina Materno Fetal

Declaración

El siguiente manuscrito no ha sido publicado previamente o remitido a otra revista

Hay consentimiento escrito de la persona involucrada en el estudio

No hay ningún tipo de conflicto de intereses del autor principal ni ninguno de los coautores

Financiamiento
Autofinanciado

Artículo recibido el 17 de octubre de 2015 y aceptado para publicación el 31 de octubre de 2015

Correspondencia
Walter R. Ventura Laveriano
Servicio de Medicina Fetal, INMP
Av. Miroquesada 941, Lima I
Telef. 3281012-1394

✉ walterichard@hotmail.com

RESUMEN

Se presenta el caso de una primigrávida de 39 semanas de edad gestacional referida a nuestro servicio por hernia diafragmática izquierda en el feto. Se programó una cirugía fetal EXIT (*ex-utero intrapartum treatment*) que permitió la intubación orotraqueal intraparto controlada evitando el período de hipoxia fetal que normalmente ocurre con el procedimiento neonatal convencional. Demostramos que esta cirugía, altamente especializada, se puede realizar exitosamente en nuestro país, incluyendo otros casos que comprometan la vía aérea del feto. A propósito del caso, la cirugía EXIT se ha constituido en el estándar de manejo perinatal de fetos con hernia diafragmática en nuestra institución.

Palabras clave: Feto; Recién Nacido; Enfermedades del Recién Nacido; Perinatología; Cirugía Intrauterina; Hernia Diafragmática Congénita.

INTRAPARTUM ENDOTRACHEAL INTUBATION IN A FETUS WITH DIAPHRAGMATIC HERNIA. A PROPOS OF THE FIRST EX-UTERO INTRAPARTUM TREATMENT (EXIT) IN PERU

ABSTRACT

We report the case of a pregnant woman attended at our unit with 39 weeks of gestation carrying a fetus affected with left diaphragmatic hernia. An EXIT (*ex-utero intrapartum treatment*) procedure was carried out in order to reduce hypoxia and aerophagia commonly observed during neonatal intubation. We demonstrate the feasibility of this highly specialized procedure in our local setting, not only for diaphragmatic hernia but also for diseases affecting fetal airway. This procedure is currently a standard procedure in perinatal care of fetuses with diaphragmatic hernia at our hospital.

Keywords: Fetus; Newborn; Newborn Diseases; Perinatology; Intrauterine surgery; Congenital Diaphragmatic Hernia.



La hernia diafragmática congénita es una anomalía severa del tórax que afecta a 1 de cada 3 000 nacidos vivos. Es más frecuente la afectación del hemitórax izquierdo; sin embargo, la hernia diafragmática derecha suele ser más severa. Se informa que hasta un 30% puede estar asociado a otras anomalías estructurales, principalmente cardíacas y también cromosómicas, tales como trisomía 13 o 18⁽¹⁾.

La hernia diafragmática congénita conlleva alta morbimortalidad perinatal debido al desarrollo de hipoplasia pulmonar e hipertensión pulmonar secundaria. En países desarrollados que cuentan con ECMO (*extra corporeal membrane oxygenation*), la tasa de supervivencia ha mejorado y puede alcanzar 70 a 80%⁽²⁾. En nuestro país no existe estadística clara de la mortalidad perinatal por hernia diafragmática, pero estimamos debe ser inferior al 50%. El tratamiento inicial es la intubación orotraqueal del recién nacido y ventilación mecánica hasta el momento de la corrección quirúrgica del defecto. En algunos casos con gran desviación mediastinal, la intubación puede ser dificultosa.

CASO CLÍNICO

Presentamos el caso de una primigrávida de 40 años que fue referida a nuestro servicio a las 24 semanas de edad gestacional por discreta desviación del corazón hacia el hemitórax derecho (figura 1a). Se realizó un examen morfológico detallado con ultrasonido de alta resolución, evidenciándose una hernia diafragmática izquierda. El estómago permanecía en el abdomen, por lo que el diagnóstico fue difícil en la ecografía de rutina. Habían asas intestinales delgadas ocupando el hemitórax izquierdo (figura 1b). El cociente pulmón cabeza era 2.0. La paciente no acudió a las citas de control hasta las 37 semanas. El crecimiento fetal fue adecuado, había polihidramnios leve. Debido a la sospecha de herniación hepática se realizó estudio de resonancia magnética (RMN) fetal, donde se evidenció que el hemitórax izquierdo estaba ocupado por intestino delgado, parte de intestino grueso y bazo (figuras 2a y 2b). Se descartó herniación hepática; sin embargo, la RMN evidenciaba desviación de la tráquea.

En nuestra institución aún no ofrecemos tratamiento prenatal de la hernia diafragmática con balón endotraqueal. No se conoce del pro-

FIGURA 1. LA ECOGRAFÍA DE LAS 24 SEMANAS MUESTRA DISCRETO DESPLAZAMIENTO DEL CORAZÓN HACIA EL HEMITÓRAX DERECHO (A). EN EL CORTE CORONAL, EL INTESTINO DELGADO OCUPA EL HEMITÓRAX IZQUIERDO (B).



nóstico perinatal de los casos diagnosticados prenatalmente en nuestro país. Para facilitar el procedimiento de intubación oro-traqueal, que en estos casos es el tratamiento inicial del manejo neonatal, y por la dificultad prevista por la desviación traqueal reportada en la RMN, se planteó el procedimiento EXIT, incluyendo intubación intraparto. Se realizaron dos reuniones conjuntas multidisciplinarias para coordinación del procedimiento, incluyendo a los médicos de los servicios de obstetricia, medicina fetal, neonatología y anestesiología. La paciente fue informada verbalmente de todo el procedimiento y dio su consentimiento por escrito para el mismo.

Se realizó la intervención programada a las 39 semanas 2 días (figuras 3a y 3b). El procedimiento se realizó bajo anestesia general. La sala de operaciones estuvo a 24° C y todo el equipo multidisciplinario estuvo presente para la realización del procedimiento. Se realizó una incisión Pfannenstiel alta con apertura amplia

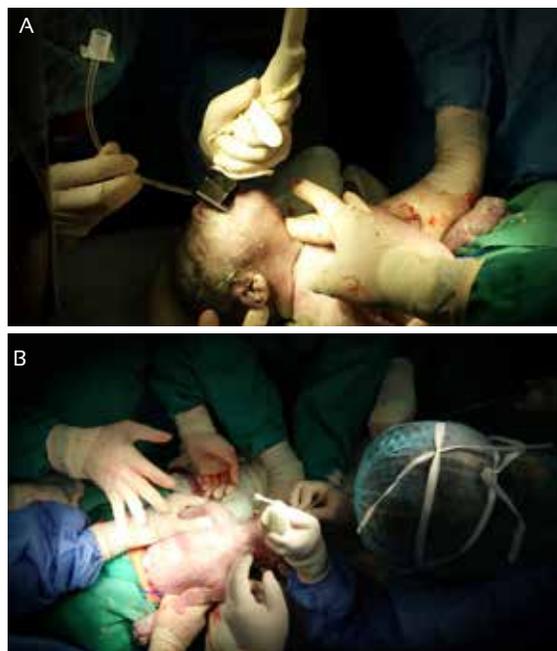


FIGURA 2. LA ECOGRAFÍA DE LAS 37 SEMANAS (A) MUESTRA GRAN DESPLAZAMIENTO DEL CORAZÓN Y EL DEFECTO EN HEMITÓRAX IZQUIERDO. LA RMN FETAL A LAS 38 SEMANAS MUESTRA GRAN DESVIACIÓN DE LAS ESTRUCTURAS DEL INTESTINO MEDIO, INCLUIDA LA TRÁQUEA (B).



de pared abdominal. Previo a la histerotomía se colocaron dos puntos de reparo en los extremos laterales del segmento uterino con la finalidad de maniobrar dicho segmento. Se exteriorizó la mitad superior del feto, dejando dentro del útero el abdomen fetal, inserción del cordón umbilical y las extremidades inferiores. Se procedió a irrigación continua de la cavidad uterina con CINA 0,9% temperado y se inició el monitoreo de la frecuencia cardíaca fetal mediante ecocardiografía continua en tiempo real, con equipo de ultrasonido Doppler de última generación. Al mismo tiempo, se admi-

FIGURA 3. FOTO INTRAOPERATORIA DE LA CIRUGÍA EXIT MOSTRANDO LA INTUBACIÓN ORO TRAQUEAL (A). SE OBSERVA EL TRABAJO MULTIDISCIPLINARIO EN PLENA CIRUGÍA (B).



nistró vecuronio, fentanilo y atropina IM en el hombro del feto. Una vez estabilizado el feto, monitorizado, con adecuada frecuencia cardíaca y relajación, el médico pediatra procedió a la intubación orotraqueal con tubo de 3,0 mm, procedimiento que duró aproximadamente 4 minutos. Los latidos fetales se mantuvieron constantes durante todo el procedimiento. Luego de fijar el tubo orotraqueal, se procedió a exteriorizar al feto y clampar y cortar el cordón umbilical. El resto de la operación se terminó como una cesárea convencional. El útero fue cerrado en un solo plano. Se obtuvo un recién nacido de 3 710 gramos, que pasó a la unidad de cuidados intensivos neonatales con el tubo orotraqueal. Luego de seis días fue sometido a la reparación del defecto diafragmático por el equipo de cirugía pediátrica. La paciente evolucionó favorablemente y permaneció en UCIN durante 15 días y luego dado de alta. Al término de este manuscrito el bebé tiene 5 meses, está en casa y presenta crecimiento y desarrollo normal para su edad.

DISCUSIÓN

Presentamos el primer caso de cirugía EXIT (*ex-utero intrapartum treatment*) realizado en el país. Este es un procedimiento quirúrgico que consiste en realizar una intervención fetal, que varía desde una intubación orotraqueal hasta



la resección de algún tumor fetal durante la cesárea, habiendo extraído solamente la cabeza y tronco fetal del útero. A diferencia de una cesárea convencional, hay dos puntos cruciales de la fisiología útero-placentaria que se deben asegurar para el éxito del procedimiento

- Mantener un continuo y adecuado flujo sanguíneo de la placenta al feto, que se logra con anestesia general, hidratación endovenosa y con drogas que relajen el músculo liso del útero. Dicho de otro modo, se debe evitar las contracciones uterinas durante la intervención fetal, debido a que se puede desprender la placenta. Por el contrario, al clampar el cordón umbilical y luego de finalizada la intervención fetal, el útero debe ser capaz de contraerse rápida y adecuadamente para evitar pérdidas sanguíneas significativas.
- Mantener el volumen del útero, para evitar la compresión del cordón umbilical, que se logra por medio de irrigación constante de la cavidad uterina y manteniendo la mitad del cuerpo fetal dentro del útero.

La cirugía EXIT fue inicialmente descrita para revertir la oclusión traqueal artificial en el momento del parto de fetos con hernia diafragmática que habían sido sometidos a oclusión traqueal intraútero⁽³⁾. Sin embargo, el abanico de indicaciones actuales es muy amplio. En general, la cirugía EXIT se realiza cuando hay riesgo elevado de muerte intraparto por obstrucción de las vías aéreas, donde se supone habrá una intubación orotraqueal dificultosa que incluya procedimientos como broncoscopia rígida, traqueostomía o la resección urgente de un tumor que afecte la ventilación del feto, o cualquier situación en la cual se prevea una reanimación neonatal comprometida como es el caso de las masas pulmonares o las hernias diafragmáticas, tal el caso reportado en el presente escrito⁽⁴⁻⁸⁾. Entre las indicaciones se incluye tumores cervicales, síndrome de vías aéreas altas congénito (CHAOS), atresia traqueal, atresia laríngea, micrognatia severa o retrognatia. Otras indicaciones incluyen masas intratorácicas con obstrucción de vía aérea, como sequestro pulmonar y teratoma mediastinal donde se han descrito resecciones en la misma cirugía EXIT⁽⁵⁾. En caso de hernia diafragmática derecha también se ha descrito el EXIT con canalización inmediata para ECMO⁽⁶⁾. El beneficio de la cirugía

EXIT es evitar una situación de emergencia y en cambio proponer un escenario controlado donde se pueda intervenir con calma y minimizando los riesgos de hipoxia o muerte fetal intraparto. Adicionalmente, se busca disminuir el esfuerzo respiratorio, logrando una situación controlada e impedir aerofagia, que ingrese aire y gas a las vísceras abdominales incluidas en el tórax^(4,7).

No obstante, es un procedimiento altamente especializado que requiere la participación y coordinación rigurosa de todo un equipo multidisciplinario, que incluye médicos materno-fetales, neonatólogos, anestesiólogo obstetra, cirujano pediatra, entre otros. Solo debe ser efectuado donde exista personal entrenado que conozca las ventajas y desventajas del procedimiento así como la fisiología fetoplacentaria que es la base de esta intervención.

En el presente caso se decidió realizar este tipo de cirugía pionera en el país, porque había un riesgo elevado de compresión traqueal. A la fecha hemos realizado cuatro procedimientos con éxito, incluido un caso de un linfangioma cervical gigante de aproximadamente 1 000 gramos de peso.

Creemos importante comunicar esta experiencia para que tanto médicos y padres conozcan que hoy se cuenta con esta alternativa para casos con obstrucción de vías áreas del feto.

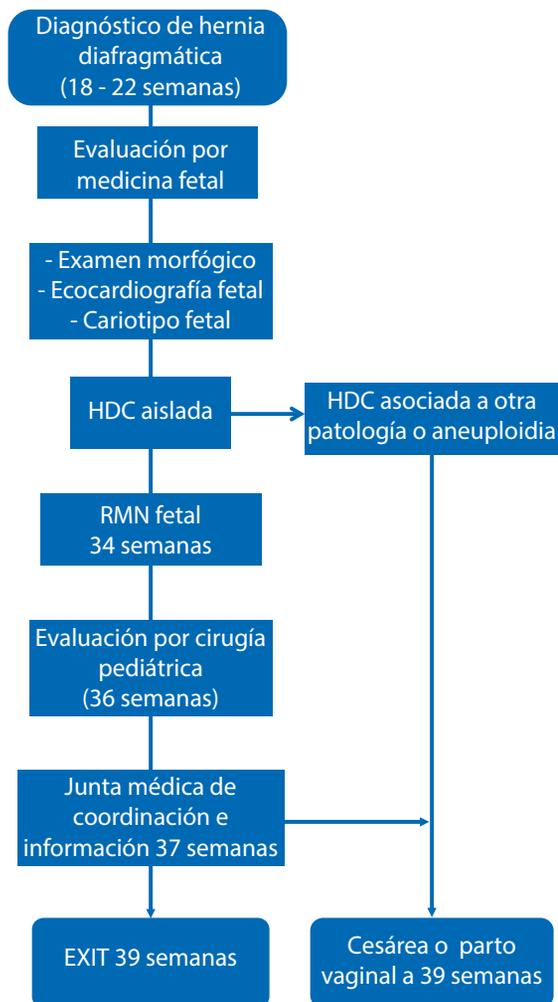
En nuestra institución, mientras no contemos con los recursos para desarrollar la colocación de balón endotraqueal intraútero, proponemos el flujograma de la figura 4, para el manejo de la hernia diafragmática congénita teniendo al EXIT como una opción importante.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Tonks A, Wyldes M, Somerset DA, Dent K, Abhyankar A, Bagchi I, Lander A, Roberts E, Kilby MD. Congenital malformations of the diaphragm: findings of the West Midlands Congenital Anomaly Register 1995 to 2000. *Prenat Diagn.* 2004; 24(8): 596-604. <http://doi.wiley.com/10.1002/pd.908>.
2. Doyle NM, Lally KP. The CDH Study Group and advances in the clinical care of the patient with congenital diaphragmatic hernia. *Semin Perinatol.* 2004;28(3):174-84. <http://eutils.ncbi.nlm.nih.gov/entrez/eutils/elink.fcgi?dbfrom=pubmed&id=15283097&retmode=ref&cmd=prlinks>.



FIGURA 4. PROPUESTA DE FLUJOGRAMA DE ATENCIÓN DE PACIENTES CON HERNIA DIAFRAGMÁTICA EN EL INSTITUTO NACIONAL MATERNO PERINATAL



HDC=hernia diafragmática congénita; RMN=resonancia magnética nuclear; EXIT=ex utero intrapartum treatment.

3. Moldenhauer JS. Ex utero intrapartum therapy. *Semin Pediatr Surg.* 2013; 2(1):44-9. doi:10.1053/j.semped-surg.2012.10.008.
4. Taghavi K, Beasley S. The ex utero intrapartum treatment (EXIT) procedure: Application of a new therapeutic paradigm. *J Paediatr Child Health.* 2013;49(9):E420-7. doi: 10.1111/jpc.12223.
5. Mychaliska GB, Bryner BS, Nugent C, Barks J, Hirschl RB, McCrudden K, et al. Giant pulmonary sequestration: the rare case requiring the EXIT procedure with resection and ECMO. *Fetal Diagn Ther.* 2009;25(1):163-6. doi:10.1159/000209202.
6. Kunisaki SM, Barnewolt CE, Estroff JA, Myers LB, Fauza DO, Wilkins-Haug LE et al. Ex utero intrapartum treatment with extracorporeal membrane oxygenation for severe congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg.* 2007;42(1):96-8. doi:10.1016/j.jpedsurg.2006.09.009.
7. Abbie J Choleva CM. Anesthetic management of a patient undergoing an ex utero intrapartum treatment (EXIT) procedure, *AANA Journal*, December 2011. *Am Assoc Nurse Anesth.* May 2011;1-7. Papers3://publication/uuid/D80DB04F-19B4-4C26-A174-A7AC2F828E0E.
8. Cruz-Martínez R, Méndez A, Pineda-Alemán H, Rebollo-Fernández C. [The EXIT procedure: Indications, limitations, risks and progress to the fetal endoscopic tracheal intubation]. *Ginecol Obstet Mex.* 2015 Jan;83(1):58-65.

