

CASO CLÍNICO

1. Médico especialista en Ginecología y Obstetricia, Departamento de Gineco Obstetricia del Hospital Nacional Alberto Sabogal Sologuren – EsSalud, Lima, Perú
2. Médico especialista en Pediatría, Sub-Especialidad en Neonatología, Servicio de Neonatología del Hospital Nacional Alberto Sabogal Sologuren- EsSalud, Lima, Perú
3. Médico especialista en Genética Médica, Servicio de Genética del Hospital Nacional Edgardo Rebagliati Martins – EsSalud, Lima, Perú
 - a. ORCID 0000-0002-1325-7249
 - b. ORCID 0000-0002-1479-234X
 - c. ORCID 0000-0002-1771-0995
 - d. ORCID 0000-0001-5865-0100
 - e. ORCID 0000-0002-9259-2896
 - f. ORCID 0000-0003-0443-6795
 - g. ORCID 0000-0001-8366-8740
 - h. ORCID 0000-0001-8093-3828

Financiamiento: ninguno.

Conflictos de interés: Ninguno de los autores tiene conflictos de interés por declarar.

Recibido: 4 enero 2022

Aceptado: 25 febrero 2022

Publicación en línea: 24 junio 2022

Correspondencia:

Dr. Oswaldo Tipiani Rodríguez
Departamento de Gineco Obstetricia,
Hospital Nacional Alberto Sabogal
Sologuren, EsSalud- Lima, Perú
+511997454058
oswaldo5tipi@hotmail.com

Citar como: Tipiani Rodríguez O, Ponciano Biaggi MA, Pérez Fleming GC, Gonzales Enríquez IM, Andrés Calvo LK, Pita Álvarez JY, Dueñas Roque MM, Pantoja Soto P. ¿Cuál es el rol actual de la toracocentesis en el hidrotórax fetal severo? Reporte de caso. Rev Peru Ginecol Obstet. 2022;68(2). DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v68i2415>

¿Cuál es el rol actual de la toracocentesis en el hidrotórax fetal severo? Presentación de caso

What is the current role of thoracentesis in severe fetal hydrothorax? Case report

Oswaldo Tipiani Rodríguez^{1,a}, Miguel A. Ponciano Biaggi^{1,b}, Gian C. Pérez Fleming^{1,c}, Israel M. Gonzales Enríquez^{1,d}, Liz K. Andrés Calvo^{1,e}, Julissa Y. Pita Álvarez^{2,f}, Milagros M. Dueñas Roque^{3,g}, Percy Pantoja Soto^{1,h}

DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v68i2415>

RESUMEN

Se llama hidrotórax a una efusión pleural primaria que ocurre durante la vida prenatal (denominado 'quilotórax primario' después del nacimiento). En ciertos casos, esta efusión es severa y produce compresión pulmonar y cardíaca, por lo cual, la mortalidad perinatal sigue siendo alta. Los recién nacidos con hidrotórax requieren, muchas veces, de drenaje, nutrición parenteral total y medicación específica para su recuperación. Sin embargo, las intervenciones prenatales, principalmente con derivaciones toraco-amnióticas, pueden mejorar estos resultados. Reportamos el caso de un feto con hidrotórax severo a quien se le realizó una toracocentesis y revisamos la literatura acerca de su rol en el tratamiento prenatal actual.

Palabras clave. Toracocentesis, Hidrotórax, Hidropesía fetal, Ultrasonografía prenatal, diagnóstico, Terapias fetales, Derrame pleural.

ABSTRACT

Hydrothorax is a primary pleural effusion that occurs during prenatal life (called "primary chylothorax" after birth). In certain cases, this effusion is severe and produces pulmonary and cardiac compression, and perinatal mortality remains high. Newborns with hydrothorax often require drainage, total parenteral nutrition and specific medication for their recovery. However, prenatal interventions, mainly with thoraco-amniotic shunts, can improve these results. We report the case of a fetus with severe hydrothorax who underwent thoracentesis and review the literature on its role in current prenatal management.

Key words: Thoracentesis, Hydrothorax, Hydrops fetalis, Prenatal ultrasonography, diagnosis, Fetal therapies, Pleural effusion.

INTRODUCCIÓN

La causa más común del hidrotórax (llamado quilotórax después del nacimiento) es la primaria (65 % de los casos). Su incidencia es de 1/10,000 a 1/15,000 nacidos vivos. Es un diagnóstico de exclusión, luego de haber descartado causas de hidrotórax secundario (anomalías cardíacas, secuestros o malformaciones adenomatoideas pulmonares, así como anemia, o infecciones por TORCH)^(1,2). Afecta más a fetos varones (52 vs. 44 %), y generalmente es bilateral (72,4 %)⁽³⁾. Se asocia con aneuploidías en 35 %, llegando al 50 % si se encuentra una malformación adicional⁽⁴⁾. En un neonato, el diagnóstico de quilotórax se hace mediante el hallazgo en el aspirado pleural de más de 1,000 leucocitos/ μ L, con 70 a 80 % de linfocitos, cantidad de proteínas similares al plasma y, más de 1,000 mg/dL de triglicéridos⁽⁵⁾. En un feto no se pueden usar estos valores, debido a la diferencia de la fuente de alimentación. En estos últimos, basta con encontrar > 80 % de linfocitos, en ausencia de infección⁽⁶⁾. Debido al efecto compresivo y desplazamiento mediastinal, los fetos tienen gran riesgo de hipoplasia pulmonar y disfunción cardíaca, por lo que la tasa de mortalidad, en general, tiene un rango de 22 a 55 %⁽⁷⁾. Ante ello, la terapia prenatal surge como una alternativa de manejo en casos severos. Reportamos el caso de un feto con hidrotórax severo a quien se le realizó una toracocentesis intrauterina; fue el segundo caso (como procedimiento único, sin *shunt*) en nuestro país⁽⁸⁾.



PRESENTACIÓN DEL CASO

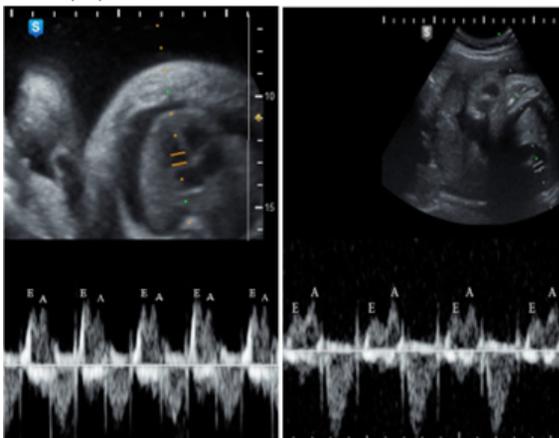
Una paciente de 31 años, nulípara, con 34 semanas de gestación, ingresó a la emergencia del Hospital Nacional Alberto Sabogal Sologuren en Lima - Perú, debido al hallazgo de hidrotórax y ascitis fetal en una ecografía extrahospitalaria. Se realizó una ultrasonografía morfológica detallada, encontrando un gran hidrotórax a predominio derecho, el cual comprimía los pulmones y desplazaba el mediastino hacia la izquierda (figura 1).

Además de polihidramnios, se observó ascitis y edema de piel (hidropesía no inmune). La ecocardiografía mostraba signos de disfunción diastólica (figura 2).

FIGURA 1. CORTE ECOGRÁFICO AXIAL DEL TÓRAX FETAL. SE OBSERVA UN GRAN HIDROTÓRAX (FLECHA MEDIANA), EL PULMÓN DERECHO COLAPSADO (FLECHA PEQUEÑA) Y EL CORAZÓN DESPLAZADO HACIA LA IZQUIERDA (FLECHA GRANDE).



FIGURA 2. ECOCARDIOGRAFÍA FETAL: A LA IZQUIERDA SE MUESTRA, ANTES DE LA TORACOCENTESIS, LA RELACIÓN ENTRE LAS ONDAS E/A IGUAL O MAYOR DE 1. A LA DERECHA, DESPUÉS DE LA TORACOCENTESIS, LA RELACIÓN E/A NORMAL (<1).



La neurosonografía y el estudio Doppler fueron normales, incluyendo la velocidad pico-sistólica de la cerebral media, alejando la posibilidad de anemia fetal. Los resultados de IgM e IgG para TORCH y parvovirus B19 en sangre materna fueron negativos. Se realizó una amniocentesis para cariotipo a las 34 3/7 semanas, resultando 46,XY (no contamos con microarray en el hospital). Se concluyó el caso como un hidrotórax primario. Las ecografías subsiguientes mostraron mayor hidropesía y desplazamiento mediastinal. Se realizó una junta médica para realizar una toracocentesis fetal, como primera opción para la descompresión torácica (reservando la derivación toraco-amniótica para el caso de recurrencia).

A las 35 6/7 semanas, con 2,700 g de ponderado fetal, usando cefazolina como profiláctico, bajo anestesia epidural materna se aplicó mediante guía ecográfica permanente una inyección intramuscular al feto con fentanilo 10 µg/kg, vecuronio 0,1 mg/kg y atropina 20 µg/kg. Lograda la inmovilización fetal, se realizó una punción rápida y firme con una aguja de 21 G a nivel del tercio superior derecho del tórax fetal, entre las líneas axilares anterior y media, hasta ingresar en el primer intento a la cavidad pleural (figuras 3, 4 y 5).

Se procedió a extraer hasta 80 mL de líquido torácico, citrino, oleoso, el cual se envió al laboratorio. Luego extrajimos la aguja del tórax hasta la cavidad amniótica, realizando entonces un amniodrenaje, obteniendo 2,800 mL de líquido amniótico. Se retiró la aguja y se verificó el bienestar fetal. Se indicó nifedipina 10 mg cada 8 horas por 2 días. Los resultados de los análisis fueron: cultivos negativos, glucosa 66 mg/dL, recuento celular con 85 % de mononucleares. Las ecografías posteriores, tomadas cada 48 horas, mostraron los pulmones expandidos, la función cardíaca con función diastólica normal y la desaparición progresiva del edema de piel y de la ascitis fetal.

A las 38 semanas la paciente inició trabajo de parto y se realizó una cesárea por disfunción uterina, obteniendo un recién nacido masculino con 3,074 g, Apgar 8 y 9 al 1 y a los 5 minutos, respectivamente. La radiografía de tórax posnatal resultó normal y se le dio de alta hospitalaria a las 48 horas sin ningún síntoma. El infante lleva una vida normal hasta la actualidad.



FIGURA 3. TORACOCENTESIS FETAL: A LA IZQUIERDA, SE OBSERVA LA AGUJA INGRESANDO A LA CAVIDAD AMNIÓTICA (FLECHA PEQUEÑA), EL PULMÓN DERECHO COLAPSADO (FLECHA MEDIANA) Y CORAZÓN DESPLAZADO (FLECHA GRANDE). A LA DERECHA, SE MUESTRA LA PUNTA DE LA AGUJA DENTRO DEL TÓRAX FETAL.

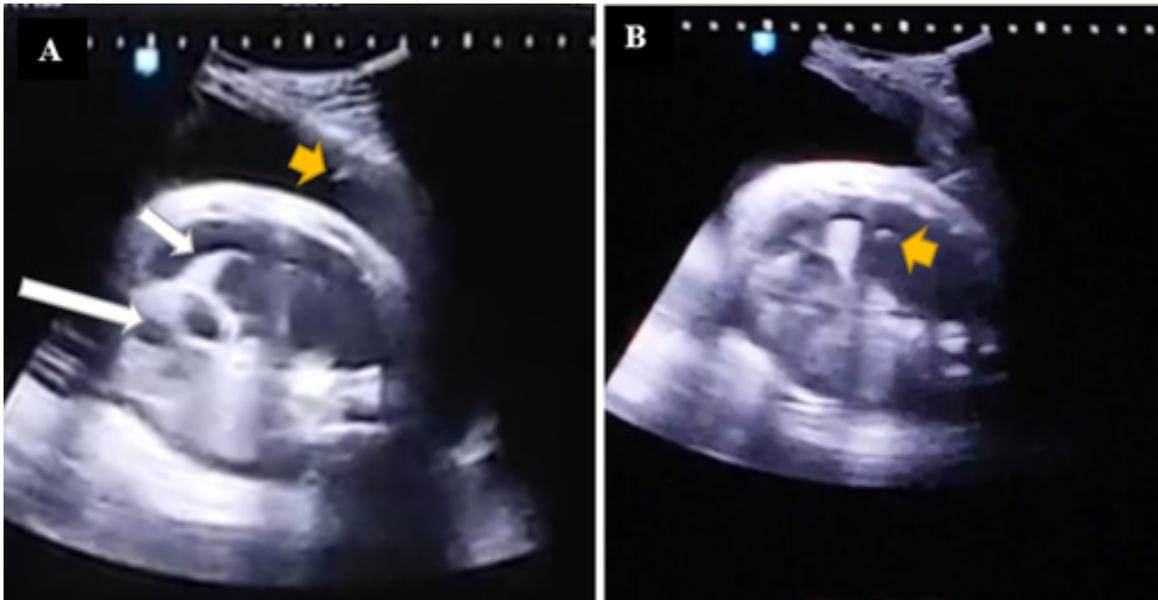


FIGURA 4. A LA IZQUIERDA, MOMENTO QUIRÚRGICO DE INTERVENCIÓN PRENATAL. A LA DERECHA, ASPECTO CITRINO Y OLEOSO DEL LÍQUIDO PLEURAL FETAL EXTRAÍDO.



DISCUSIÓN

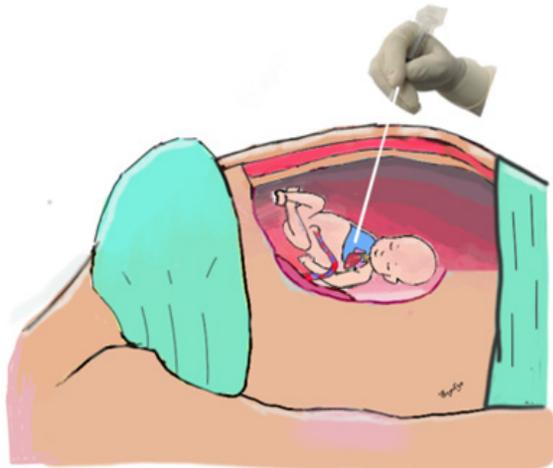
En un feto con hidrotórax, el incremento de la presión intratorácica y el desplazamiento del mediastino disminuye el retorno venoso, amiora la *compliance* cardíaca y se produce insuficiencia, con efusión de líquido hacia la cavidad torácica y abdominal (hidropesía no inmune). Por otro lado, la compresión esofágica dificulta la deglución, produciéndose polihidramnios. Asimismo, la compresión pulmonar compromete su desarrollo, incrementando el riesgo de hipoplasia, sobre todo cuando se presenta en etapas tempranas del embarazo⁽⁹⁾. Respecto de la función cardíaca, encontramos una tendencia

a la inversión de la relación E/A en el espectro Doppler (figura 2), cuya onda E representa el llenado ventricular pasivo y la A, la contracción auricular. En un feto normal, el índice E/A suele ser inferior a 1; sin embargo, con el hidrotórax haciendo un efecto de taponamiento, se observó una disfunción diastólica, en la que el corazón se vuelve menos complaciente y más dependiente en la contracción auricular. Luego de la descompresión, todos estos signos se normalizaron en 48 horas.

El pronóstico de un feto con hidrotórax depende, principalmente, de la presencia de hidropesía. Así, en un estudio con 287 fetos se encontró



FIGURA 5. TORACOCENTESIS FETAL: DIBUJO QUE ILUSTR LA INSERCIÓN DE UNA AGUJA EN EL TÓRAX FETAL. ELABORACIÓN PROPIA.



que los fetos hidróticos tuvieron una chance de muerte fetal, neonatal e infantil más alta que aquellos sin hidropesía (13,9 %, 23,1 %, 5,1 % vs. 1,1 %, 1,1 %, 0 %, respectivamente), debido a que los primeros nacieron significativamente más prematuros (32,9 vs. 37,2 semanas) y requirieron más ventilación mecánica. Los factores de riesgo para muerte en fetos hidróticos fueron tener menos de 30 semanas (OR= 2,1; $p=0,005$), ascitis y/o edema de piel (OR= 2,3; $p=0,001$) y efusión bilateral (OR= 3,1; $p=0,02$)⁽¹⁰⁾. En otro estudio no se observó beneficio de la colocación de una derivación toraco-amniótica vs. el manejo expectante en fetos sin hidropesía⁽¹¹⁾. Por consiguiente, en un feto con hidropesía está indicado realizar un procedimiento invasivo, debido a que su regresión espontánea intraútero es rara (6,2 % vs. 25 %)⁽¹⁰⁾.

Las indicaciones cada vez más consensuadas para el tratamiento prenatal invasivo incluyen: a) hidrotórax primario que produce hidropesía no inmune, b) derrame pleural aislado sin hidropesía que ocupa más del 50 % de la cavidad torácica, el cual produce una desviación mediastínica marcada o que aumentaba rápidamente, y c) ausencia de malformaciones mayores⁽⁹⁾. Otros, consideran, además de las anteriores, la alteración de la función cardíaca determinada por ecocardiografía fetal⁽¹⁾.

Por tanto, la terapia fetal invasiva en la forma de derivación toraco-amniótica o pleuro-amniótica (PAS, por las siglas del inglés *pleuro-amniotic shunting*) ha demostrado reducir significativamente la muerte en estos fetos (OR= 0,61; $p=0,01$)⁽¹⁰⁾. Asimismo, estudios observacionales

indican que los fetos sometidos a intervención prenatal tienen mejor Apgar, menos trombosis y menos días con ventilador mecánico⁽¹²⁾.

Pero ¿en qué momento se puede realizar una toracocentesis? Este procedimiento tiene la desventaja de una posible nueva acumulación después del drenaje. Por ejemplo, en una revisión de 29 casos, el 76 % tuvo reacumulación de líquido pleural dentro de las 24 a 48 horas⁽¹³⁾. Sin embargo, cuando se está cerca del parto, puede considerarse para ayudar a la reanimación neonatal⁽²⁾. De acuerdo con las guías de la Sociedad de Medicina Materno Fetal, ante un gran hidrotórax que produce hidropesía, se puede colocar una PAS, sobre todo en gestaciones lejanas al término. Pero si la gestación es avanzada, puede considerarse una toracocentesis antes del nacimiento⁽⁶⁾. En nuestro caso, una toracocentesis realizada a las 35 6/7 semanas bastó para descomprimir el tórax y reconstituir la función cardíaca y pulmonar, con la consecuente desaparición de la hidropesía. Nuestra hipótesis, en consenso con los neonatólogos, y considerando que un hidrotórax se produce por agenesia, fístulas, atresia u obstrucción del conducto torácico, es que estuvimos frente a un caso de obstrucción de dicho conducto, el cual remitió al mejorar la hemodinamia circulatoria al reconstituirse las presiones vasculares, consecuencia de la descompresión torácica.

Por otro lado, para algunos autores, la descompresión torácica es importante incluso en gestaciones cercanas al término. Así, hay estudios en los cuales se reportan derivaciones colocadas en fetos con más de 36 semanas⁽³⁾, incluso a las 37^(8,14,15). Esto es debido a que la reanimación de un recién nacido hidrótico representa un desafío médico debido al estado edematoso de sus vías respiratorias, lo cual dificulta la intubación; aparte de la afectación de la ventilación debido a los grandes derrames. Con un equilibrio de líquidos de 24 a 48 horas se facilita significativamente la reanimación neonatal inmediata⁽¹⁴⁾, por lo cual algunos abogan por el uso de derivaciones incluso en gestaciones a término⁽¹⁶⁾.

Finalmente, el parto puede considerarse a las 37 o 38 semanas, en un hospital de tercer nivel, capaz de estabilizar y tratar neonatos críticos⁽⁶⁾. Debemos tener en cuenta que, si el bebé nace sin tratamiento prenatal, la gran cantidad de líquido



pleural puede dificultar la expansión pulmonar y comprometer gasto cardíaco, poniéndolo en riesgo de hipoxia severa y lesión isquémica, por lo que la asistencia respiratoria debe ser inmediata: suplementos de oxígeno, ventilación con presión positiva y/o intubación y drenaje.

En conclusión, el tratamiento prenatal invasivo mejora la supervivencia de los fetos con hidrotórax primario severo. La toracocentesis prenatal puede ser considerada en gestaciones cercanas al término.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Shamshirsaz AA, Erfani H, Aalipour S, Shah SC, Nassr AA, Stewart KA, Rezaei A, et al. Primary fetal pleural effusion: Characteristics, outcomes, and the role of intervention. *Prenat Diagn*. 2019 May;39(6):484-8. DOI: 10.1002/pd.5462
2. Bulas D, Egloff A. Fetal chest. In Cleveland RH, Lee EY, editors. *Imaging in Pediatric Pulmonology*, 2nd Edition [online]. Boston: Springer, Cham; 2020 [Acceso: 21 de junio 2021] p. 44-45. Disponible en: https://doi.org/10.1007/978-3-030-23979-4_4
3. Chon AH, Chmait HR, Korst LM, Llanes A, Ouzounian JG, Chmait RH. Long-term outcomes after thoracoamniotic shunt for pleural effusions with secondary hydrops. *J Surg Res*. 2019 Jan;233: 304-9. DOI: 10.1016/j.jss.2018.08.022
4. Waller K, Chaithongwongwatthana S, Yamasmit W, Donnenfeld AE. Chromosomal abnormalities among 246 fetuses with pleural effusions detected on prenatal ultrasound examination: factors associated with an increased risk of aneuploidy. *Genet Med*. 2005;7(6):417. DOI: 10.1097/01.gim.0000170774.86075.12
5. Attar MA, Donn SM. Congenital chylothorax. *Semin Fetal Neonatal Med*. 2017 Aug;22(4):234-9. DOI: 10.1016/j.siny.2017.03.005
6. Society for Maternal-Fetal Medicine (SMFM), Norton ME, Chauhan SP, Dashe JS. Society for maternal-fetal medicine (SMFM) clinical guideline #7: nonimmune hydrops fetalis. *Am J Obstet Gynecol*. 2015 Feb;212(2):127-39. DOI: 10.1016/j.ajog.2014.12.018
7. Matsui M, Takahashi Y, Iwagaki S, Asai K, Katsura D, Yasumi S, Furuhashi M. Long-term outcomes of 92 cases of fetal hydrothorax including thoracoamniotic shunting. *Fetal Diagn Ther*. 2020; 47:60-5. DOI: 10.1159/000500568
8. Albinagorta Olórtegui, R. Toracocentesis intrauterina de quilotórax congénito: Reporte de un caso. *Rev peru ginecol obstet*. 2015;57:117-9. DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v57i196>
9. Abbasi N, Ryan G. Fetal primary pleural effusions: Prenatal diagnosis and management. *Best Pract Res Clin Obstet Gynaecol*. 2019 Jul; 58:66-77. DOI: 10.1016/j.bpobgyn.2019.01.005
10. Wada S, Jwa SC, Yumoto Y, Takahashi Y, Ishii K, Usui N, Sago H. The prognostic factors and outcomes of primary fetal hydrothorax with the effects of fetal intervention. *Prenat Diagn*. 2017 Feb;37(2):184-92. DOI: 10.1002/pd.4989
11. Carson E, Devaseelan P, Ong S. Systematic review of pleural-amniotic shunt insertion vs. conservative management in isolated bilateral fetal hydrothorax without hydrops. *Ir J Med Sci*. 2020 May;189(2):595-601. DOI: 10.1007/s11845-019-02094-5
12. Carr BD, Sampang L, Church JT, Mon RA, Gadepalli SK, Attar MA, Perrone EE. Fetal intervention for congenital chylothorax is associated with improved outcomes in early life. *J Surg Res*. 2018 Nov;231:361-5. DOI: 10.1016/j.jss.2018.05.082
13. Aubard Y, Derouineau I, Aubard V, Chalifour V, PM. Primary fetal hydrothorax: a literature review and proposed antenatal clinical strategy. *Fetal Diagn Ther* 1998;13(6):325-33. DOI: 10.1159/000020863
14. Yinon Y, Grisaru-Granovsky S, Chaddha V, Windrim R, Windrim R, Seaward PG, Beresovska O, Ryan G. Perinatal outcome following fetal chest shunt insertion for pleural effusion. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2010;36(1):58e64. DOI: 10.1002/uog.7507
15. Dorsi M, Giuseppi A, Lesage F, Stirnemann J, De Saint Blanquat L, Nicloux M, Assaf Z, et al. Prenatal factors associated with neonatal survival of infants with congenital chylothorax. *J Perinatol*. 2018 Jan;38(1):31-4. DOI: 10.1038/jp.2017.150
16. Abbasi N, Ryan G. Fetal pleural effusions and pulmonary pathology: Pathophysiology and clinical management. In: Kilby MD, Johnson A, Oepkes D (eds.) *Fetal Therapy: Scientific Basis and Critical Appraisal of Clinical Benefits*. 2nd ed. [Online]. Cambridge: Cambridge University Press; 2020. [Acceso: 21 de junio 2021] p. 438-48. Disponible en: <https://doi.org/10.1017/9781108564434.043>