

112424



UNIVERSIDAD NACIONAL AUTÓNOMA
DE MÉXICO

INSTITUTO NACIONAL DE PERINATOLOGIA

"DERIVACIONES TORACOAMNIOTICAS Y TORACOCENTESIS EN EL FETO
COMO TRATAMIENTO EN ANOMALIAS TORACICAS NO CARDIACAS"

T E S I S

QUE PARA OBTENER EL TITULO DE ESPECIALISTA EN:

MEDICINA MATERNO FETAL

P R E S E N T A:

DRA. AMPARO LILIANA ZAPIEN OVANDO

TITULAR: DR. MARIO ESTANISLAO GUZMAN HUERTA
TUTOR: DR. JUAN MANUEL GALLARDO GAONA



INSTITUTO NACIONAL DE PERINATOLOGIA
MEXICO, D.F.

2004



DIRECCION DE ENSEÑANZA



Universidad Nacional
Autónoma de México

Dirección General de Bibliotecas de la UNAM

Biblioteca Central



UNAM – Dirección General de Bibliotecas
Tesis Digitales
Restricciones de uso

DERECHOS RESERVADOS ©
PROHIBIDA SU REPRODUCCIÓN TOTAL O PARCIAL

Todo el material contenido en esta tesis esta protegido por la Ley Federal del Derecho de Autor (LFDA) de los Estados Unidos Mexicanos (México).

El uso de imágenes, fragmentos de videos, y demás material que sea objeto de protección de los derechos de autor, será exclusivamente para fines educativos e informativos y deberá citar la fuente donde la obtuvo mencionando el autor o autores. Cualquier uso distinto como el lucro, reproducción, edición o modificación, será perseguido y sancionado por el respectivo titular de los Derechos de Autor.

UNIVERSIDAD NACIONAL AUTONOMA DE MEXICO
INSTITUTO NACIONAL DE PERINATOLOGIA - INPer -

**“DERIVACIONES TORACOAMNIOTICAS Y TORACOCENTESIS
EN EL FETO COMO TRATAMIENTO EN ANOMALIAS TORACICAS
NO CARDIACAS”**

TESIS

PARA OBTENER EL TITULO DE:
ESPECIALISTA EN MEDICINA MATERNO FETAL



SUBDIVISION DE ESPECIALIDADES
DIVISION DE ESTUDIOS
FACULTAD DE MEDICINA
U.N.A.M.

PRESENTA:

DRA. AMPARO LILIANA ZAPIEN OVANDO

TITULAR: DR. MARIO ESTANISLAO GUZMÁN HUERTA

TUTOR: DR. JUAN MANUEL GALLARDO GAONA

MEXICO DF., 2004

INDICE

RESUMEN	3
ANTECEDENTES.....	5
OBJETIVO.....	17
DESCRIPCIÓN DE LOS ESTUDIOS.....	18
RESULTADOS.....	20
DISCUSIÓN.....	35
TABLAS DE REVISIÓN.....	45
BIBLIOGRAFÍA.....	52

RESUMEN

Antecedentes: La historia natural de las anomalías pulmonares diagnosticadas en la etapa prenatal es muy variable⁷.

Las anomalías torácicas no cardíacas se presentan como resultado de diferentes anomalías en el periodo embrionario con mecanismos fisiopatológicos similares, los cuales tienen un efecto devastador sobre el desarrollo fetal y el resultado perinatal. La malformación adenomatoide quística congénita (MAQC), el secuestro broncopulmonar (SBP) y el hidrotórax (HT); pueden crear compresión intratorácica fetal por un efecto de masa. Estas alteraciones tienen repercusión directa sobre el desarrollo pulmonar normal y producen repercusión hemodinámica. Estas lesiones pueden ser causa de muerte prenatal o neonatal sin diagnóstico previo. Gracias a la valoración prenatal hoy en día se sabe más de la evolución natural de estas lesiones y también se han determinado algunos factores pronósticos que pueden ser de utilidad para determinar la terapéutica más adecuada en cada caso. El tratamiento fetal in útero hoy en día incluye: toracocentesis, derivación toracoamniótica e intervención quirúrgica fetal abierta³. Es importante conocer los resultados que ya se han obtenido con derivaciones toracoamnióticas y /o toracocentesis como manejo en estos fetos con la finalidad de establecer nuevas pautas de manejo.

Objetivo: Evaluar de forma cualitativa el efecto de las derivaciones toracoamnióticas y la toracocentesis en la sobrevivencia de fetos con anomalías torácicas no cardíacas.

Material y métodos: Se revisaron un total de 22 artículos (15 series de casos y 7 reportes de un caso) describiendo 308 casos de fetos con Malformación adenomatoidea quística congénita (MAQC), 25 casos de hidrotórax y 55 casos de secuestro bronco pulmonar

(SBP). Se analizaron los factores pronósticos utilizados para la elección de tratamiento in útero, así como sus complicaciones y el resultado perinatal.

Resultados. De los 388 casos de anomalías torácicas no cardíacas, fueron manejados conservadoramente 250 fetos, y a 102 fetos se les inició manejo in útero.

Se identificó al hidrops como el principal factor pronóstico adverso para los fetos con anomalías torácicas no cardíacas; con una sobrevida del 55.7% (tabla 9).

La sobrevida global fue del 56.5% (155 casos) en los fetos con MAQC, 98.1% (52 casos) en los fetos con SBP y del 80% (20 casos) en los fetos con hidrotórax.

Con los resultados obtenidos podemos deducir que al tener un feto con alguna de estas patologías, debe ser evaluado de forma individual e integral; según la edad gestacional a la que se diagnostica, así como el tipo de lesión y la presencia o ausencia de hidropesía fetal para decidir entre terapia fetal o manejo expectante ya que se ha visto que un gran número de anomalías remite espontáneamente. En los casos sin factores pronósticos adversos en los que se decide manejo expectante deben realizarse revisiones ultrasonográficas seriadas para valorar crecimiento de la masa, desviación mediastinal y presencia de hidropesía, reevaluando el caso en cada visita ya que en cualquier momento pudieran requerir de manejo in útero. Con la información obtenida no podemos establecer hasta el momento cual tratamiento es el ideal; por lo que hacen falta más estudios al respecto con el fin de establecer líneas de manejo bien definidas.

ANTECEDENTES

Las anomalías torácicas no cardíacas se presentan como resultado de diferentes anomalías en el periodo embrionario con mecanismos fisiopatológicos similares; estos tienen un efecto devastador sobre el desarrollo fetal y el resultado perinatal. Han sido descritos tres tipos de anomalías torácicas no cardíacas en los que se ha realizado como terapia fetal toracocentesis y/o derivaciones toracoamnióticas: La malformación adenomatoide quística congénita (MAQC), el secuestro broncopulmonar (SBP) y el hidrotórax (HT); todas ellas por efecto de masa, pueden crear compresión intratorácica fetal y tener como consecuencia hipoplasia pulmonar hidrops y muerte.

Muchos autores han estudiado este tipo de patologías con la finalidad de conocer su evolución clínica así como los factores de mal pronóstico que pueden presentarse en estos casos. Gracias a todas estas investigaciones se tienen importantes avances en el contexto clínico de estas enfermedades.

La severidad y repercusión que estas anomalías pueden tener sobre el feto guardan relación con la edad gestacional en la que se forman.

El desarrollo pulmonar ocurre en 4 etapas:

1. Seudoglandular.- Desde la concepción hasta las 5 semanas de gestación.
2. Canalicular.- 17 a 24 semanas.
3. Sacular.- 24 a 32 semanas.
4. Alveolar o saco terminal.- 32 semanas hasta 8 años.

El árbol bronquial se forma durante el periodo pseudoglandular, si en esta etapa se formara una masa intratorácica grande daría como consecuencia una disminución en el número de

divisiones bronquiales; en cambio las masas pulmonares que aparecen en las últimas dos etapas del desarrollo pueden traer como consecuencia reducción del tamaño de las vías respiratorias, disminución del número y tamaño de los alvéolos, así como un aporte vascular anómalo.

En el caso de la **MAQC** se desconoce su etiología; pero se cree que existe una falla en la maduración de las estructuras bronquiales y que esto ocurre entre las 5 y 6 semanas de gestación durante la fase pseudoglandular del desarrollo pulmonar; algunos otros autores consideran que la MAQC representa una displasia pulmonar².

Stocker y colaboradores elaboraron en el año de 1977 una subdivisión de MAQC en 3 tipos basándose en sus características macroscópicas e histológicas:

1. Las lesiones tipo I se caracterizan por un pequeño número de quistes grandes (de hasta 7 cm.) cubiertos por epitelio pseudoestratificado ciliado. A estas lesiones pertenecen el 50% de los casos postnatales y por lo general se relacionan con buen pronóstico.
2. Las lesiones tipo II constan de muchos quistes pequeños (por lo general de menos de un cm.) y explican el 40% de las lesiones prenatales. Tiene una alta frecuencia de asociación con anomalías congénitas y el pronóstico depende de la severidad de dichas anomalías³. Las anomalías más comúnmente asociadas involucran el sistema genitourinario (agenesia renal o disgenesia), alteraciones cardíacas (tronco arterioso y Tetralogía de Fallot), atresia yeyunal, hernia diafragmática, hidrocefalia y anomalías esqueléticas³.

3. Las lesiones tipo III están compuestas de una masa microquística homogénea cubierta por epitelio cuboide, separada por estructuras del tamaño de alvéolos, de forma irregular, cubiertas por epitelio cuboideo no ciliado. Estas lesiones explican el 10% de los casos y tienen el peor pronóstico³. Generalmente se asocian con hidropesía fetal y compromiso cardiorrespiratorio al nacimiento².

Adzick y colaboradores propusieron otro sistema de clasificación basado en datos anatómicos y ultrasonográficos:

1. Lesiones macroquísticas que contiene quistes únicos o múltiples de al menos 5 mm de diámetro y que aparecen ecotransparentes en la ultrasonografía prenatal.
2. Lesiones microquísticas las cuales son más sólidas, contienen quistes menores de 5mm de diámetro, y parecen ecogeneas en la ultrasonografía⁴.

Las lesiones microquísticas son menos frecuentes y por lo general tienen peor pronóstico³.

En la mayoría de los reportes no se asocia con otras anomalías.

En el caso de la embriogenia del **secuestro broncopulmonar**; existen muchas teorías; la más comúnmente aceptada es que un primordio supernumerario surge en posición caudal al primordio pulmonar normal y emigra en relación caudal con el esófago. Si este primordio pulmonar supernumerario se forma antes del desarrollo de la pleura, queda envuelto con el pulmón adyacente y se convierte en un secuestro broncopulmonar intralobar es decir, comparten la misma pleura que el pulmón normal (75% de los casos). Si por el contrario; el primordio supernumerario aparece después que se ha formado la pleura, este se desarrolla

separado del pulmón y queda circundado por su propia pleura, lo que forma un secuestro broncopulmonar extralobar³, es decir, tienen una pleura separada (25% de los casos)³.

El secuestro broncopulmonar se caracteriza por regiones de parénquima pulmonar no funcional que no presentan conexión normal con el árbol traqueo bronquial y poseen un aporte sanguíneo anómalo que por lo general surge de la aorta y de sus ramas principales. Estas raras malformaciones representan apenas 0.15 a 6.4% de todas las anomalías pulmonares congénitas. Casi siempre son unilaterales con predominio en el lóbulo inferior. Con mayor incidencia en el sexo masculino³.

Las lesiones intralobares son más frecuentes en lactantes y niños, mientras que las extralobares se diagnostican con más frecuencia en fetos y recién nacidos³.

Debe tomarse en cuenta que la masa pulmonar identificada en el feto puede tener regresión espontánea del tamaño aproximadamente en el 20% de los casos, en algunos presentando regresión completa, sin evidencia de la lesión al nacimiento³.

El **Hidrotórax** fetal se refiere a una acumulación de líquido dentro del tórax, el cual puede ser unilateral o bilateral y se puede deber al escape de quilo desde el conducto torácico, o a la retención generalizada vinculada con hidropesía fetal.

La evolución clínica del Hidrotórax al igual que el SBP es muy variable desde regresión espontánea y pronóstico satisfactorio hasta muerte fetal o neonatal; 40% de los casos están asociados con otra anomalía fetal³. Puede ser primario o secundario, el primario sobreviene por escape de quilo (también llamado quilotórax), se presenta 1 de cada 10 000 a 15 000 embarazos; y es la causa más frecuente de derrame pleural en recién nacidos³.

El hidrotórax secundario es la causa más frecuente de derrame pleural en fetos, se presenta en uno de cada 1500 embarazos y se puede deber a una gran variedad de trastornos maternos o fetales como isoimmunización, infección, aneuploidia, malformaciones de la placenta y del cordón umbilical, arritmias fetales y otras anomalías estructurales que afectan el tórax fetal³.

El Ultrasonido antenatal demuestra derrame pleural, el drenaje in útero está recomendado para prevenir la hipoplasia pulmonar y para facilitar la resucitación neonatal²⁴.

En todos los tipos de anomalías torácicas no cardíacas, la valoración inicial debe incluir estudio de ultrasonografía para determinar el tamaño de la lesión y el tipo de la misma, además de identificar si la lesión provoca desviación del mediastino o hidropesía fetal. La presencia de hidropesía fetal está asociada con el peor pronóstico. Las lesiones que no se acompañan de hidropesía por lo general tienen un buen resultado clínico, y la mayoría de los casos pueden tratarse de forma expectante con parto al término y tratamiento quirúrgico en el período postnatal. El tratamiento prenatal quirúrgico del feto mediante descompresión puede mejorar sustancialmente el resultado clínico en los pacientes que presentan hidropesía o desviación mediastinal.

Actualmente no contamos con pautas de manejo específicas para fetos con diagnóstico in útero de estas patologías, debido en parte a la imposibilidad de realizar ensayos clínicos aleatorizados.

Diversos autores han realizados procedimientos in útero como toracocentesis y derivaciones toracoamnóticas en este tipo de pacientes con la finalidad de ofrecerles mejores expectativas de vida, basándose en los conocimientos que se tienen con respecto a la evolución clínica de estas patologías. Las publicaciones ha este respecto aportan valiosa

información para poder establecer no solamente pautas más específicas de manejo, sino que también puede ayudarnos a comprender mejor su fisiopatología, los factores pronósticos que deben ser tomados en cuenta para iniciar terapia fetal, y las complicaciones que se han presentado en este tipo de procedimientos. El tratamiento elegido en estos embarazos depende del tipo de lesión, de la presencia o ausencia de complicaciones y de la edad gestacional en el momento de hacer el diagnóstico².

En las anomalías torácicas no cardíacas la evolución natural de las lesiones puede ser muy variable, y esta depende principalmente del tamaño de los quistes³. En algunos casos la lesión puede ser completamente asintomática y requerir únicamente vigilancia ultrasonográfica hasta el nacimiento. En otros casos una masa grande puede causar desviación del mediastino que da por resultado obstrucción de la cava, alteración cardíaca y como consecuencia hidropesía fetal.

Este efecto de masa también puede tener como consecuencia hipoplasia del pulmón normal adyacente, o compresión del esófago con polihidramnios subsecuente³. 8% de los pacientes presentan en etapa postnatal compromiso cardiorrespiratorio severo debido a hipoplasia pulmonar². Las lesiones habitualmente son letales en presencia de hidropesía fetal, aunque se han documentado algunos casos de sobrevida³.

La descompresión antenatal con derivación pleuroamniótica o toracocentesis puede dar como resultado una disminución importante de la morbimortalidad⁸.

Se han descrito 3 técnicas en la literatura para el tratamiento in útero de estas lesiones:

1. Toracocentesis

2. Derivación toracoamniótica

3. Cirugía fetal abierta

El primer caso reportado de MAQC y tratamiento in útero fue descrito en 1987 por Nicolaides y cols³.

La extirpación in útero es la intervención más eficaz en el manejo de las lesiones poliquísticas o predominantemente sólidas que se asocian con hidropesía³.

La toracocentesis seriada y la colocación de una derivación deben considerarse únicamente para las lesiones quísticas grandes, además de representar intervenciones de menor invasión que una cirugía fetal abierta.

Aunque dichas derivaciones pueden ser benéficas en los casos de lesiones tipo I grandes, generalmente este tipo de lesiones tienen buen pronóstico por lo que debe valorarse adecuadamente su beneficio³. La toracocentesis no garantiza la descompresión del tórax a largo plazo¹. En todos los pacientes con hidropesía así como en los pacientes con derrame pleural grande, antes de las 32 semanas de gestación, debe considerarse tratamiento prenatal. En el caso de los pacientes con hidropesía a las 32 a 34 semanas de gestación, debe considerarse la administración de inductores de madurez pulmonar, parto temprano y extirpación postnatal inmediata. El derrame pleural puede ser manejado con toracocentesis aunque la mejoría puede ser transitoria por reacumulación de líquido, lográndose un efecto más duradero con el uso de derivación toracoamniótica.

Se ha reportado un riesgo del 8% con la punción y colocación del catéter, y un 25% de obstrucción y dislocación¹⁷.

El hidrops fetal no inmune representa un problema obstétrico importante con una tasa elevada de morbilidad y mortalidad perinatal¹⁸. En ausencia de tratamiento prenatal estos fetos generalmente fallecen³.

La evaluación prenatal requiere de diversos estudios complementarios tales como:

- 1.- US Nivel II ya que siempre es necesario identificar anomalías adicionales.
- 2.- Una ecocardiografía fetal es necesaria porque las anomalías cardíacas pueden asociarse con estas lesiones; esto también es un componente importante en la evaluación en presencia de hidrops fetal.
- 3.- El estudio de flujometría Doppler puede ayudar a diferenciar la MAQC avascular de otras masas tales como secuestro broncopulmonar las cuales están usualmente asociadas con una arteria anómala originaria de la aorta fetal.
- 4.- El estudio de cariotipo también es parte de la evaluación en toda paciente que piensa someterse a manejo in útero.

La decisión de tratamiento in útero se reserva únicamente para aquellos fetos que desarrollan complicaciones secundarias que empeoran el pronóstico del embarazo, tales como daño pulmonar temprano por compresión, aparición de hidrops y/o polihidramnios progresivo, con la finalidad de corregir los disturbios físicos que llevan a dichas complicaciones. Así mismo, la decisión del tratamiento ideal para cada caso en particular va a depender tanto del tipo como del tamaño y el número de lesiones.

Muchos de los secuestros pulmonares disminuyen espontáneamente de tamaño antes del nacimiento y quizás no requieran manejo posterior⁷.

Una vez que el feto es identificado bajo los criterios descritos y se ha valorado el beneficio potencial, el primer paso importante en la terapia es iniciar el drenaje de los macroquistes. Si se trata de un solo quiste puede ser tratado una sola vez con toracocentesis, en algunos casos de quistes con septos en su interior es necesario que estos sean destruidos con la aguja para drenar la mayor cantidad de líquido.

El punto de entrada a través del tórax fetal y dentro del macroquiste se elige con cuidado tomando en cuenta como se considera que el quiste será drenado. Como en todas las intervenciones uterinas se realiza bajo técnica estéril y administrando antibióticos vía oral como profilaxis.

Si la intervención se realiza en segundo y tercer trimestre puede presentarse irritabilidad uterina por lo que se monitorizan durante una a dos horas mínimo utilizando terapia tocolítica.

El procedimiento se realiza bajo guía ultrasonográfica con una aguja espinal calibre 22 cuidadosamente introducida en la cavidad amniótica con un ángulo apropiado que permita con una sola entrada lineal llegar al tórax fetal entre las líneas media axilar y media clavicular. Preferentemente las punciones deben realizarse en fondo uterino para reducir el riesgo de pérdida de líquido amniótico y los riesgos asociados de oligohidramnios y corioamnioitis. Desde la posición del tórax fetal, se selecciona el espacio apropiado entre las costillas adyacentes y la aguja pasa a través del tórax fetal justo sobre la costilla inferior evitando los vasos y nervios que pasan a lo largo del margen inferior de la costilla superior. Durante el proceso el quiste puede ser drenado completamente; el líquido que sea retenido se puede drenar llevando la aguja a otros pasajes transtorácicos lo cual aumenta

significativamente el riesgo de trauma y sus potenciales complicaciones. El estudio Doppler color también puede ser utilizado durante el procedimiento para visualizar los vasos de la pared torácica, Generalmente se reevalúa al feto 3 a 5 días después para determinar si hay reacumulación de líquido o si se presentan complicaciones secundarias a la descompresión del macroquiste; si no es así se realiza seguimiento ultrasonográfico semanal para evaluar crecimiento y presencia de complicaciones adicionales. si el quiste se reaccumula rápidamente puede ser necesario el drenaje con una derivación permanente, en la mayoría de los casos se utiliza un catéter doble cola de cochino (algunos autores utilizan catéter Rocket); a si mismo, si en el feto no hay reacumulación importante de líquido pero no se resuelven el polihidramnios y el hidrops se considera la colocación de derivación toracoamniótica poniendo en una balanza los beneficios de la intervención con los potenciales riesgos y complicaciones tanto para la madre como para el feto; estos incluyen falla de la técnica en la colocación del catéter o mala función del mismo (con la involución del quiste durante el drenaje el catéter puede ser desplazado perdiendo su parte proximal hacia la cavidad del quiste), posible infección, parto pretérmino, traumatismo y muerte fetal. Si el feto presenta movimientos que puedan dificultar la colocación del catéter es necesario paralizarlo temporalmente usando pancuronio (una sola aplicación intramuscular en muslo o deltoides fetal a una dosis de 1 mg/kg. de peso fetal estimado) esto rara vez es necesario. Después de la colocación de la derivación se evalúa al feto dos a tres días después para verificar la buena función del catéter. Posteriormente se recomiendan US semanales para documentar la continuidad de la función y la resolución de los problemas asociados (polihidramnios, hidrops, desviación mediastinal) además de las ya mencionadas complicaciones adicionales.

Se han publicado algoritmos para la evaluación, seguimiento y manejo de las masas

pulmonares (fig 1 y 2).

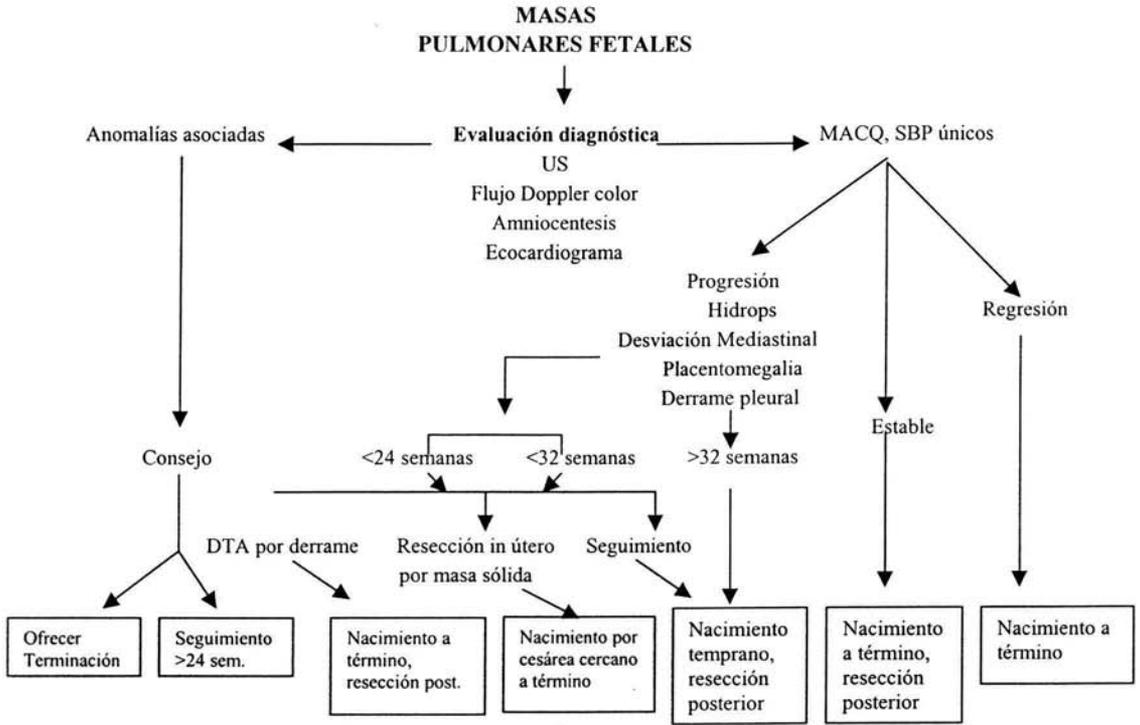


Fig 1. Algoritmo para el manejo de las masas pulmonares fetales¹²

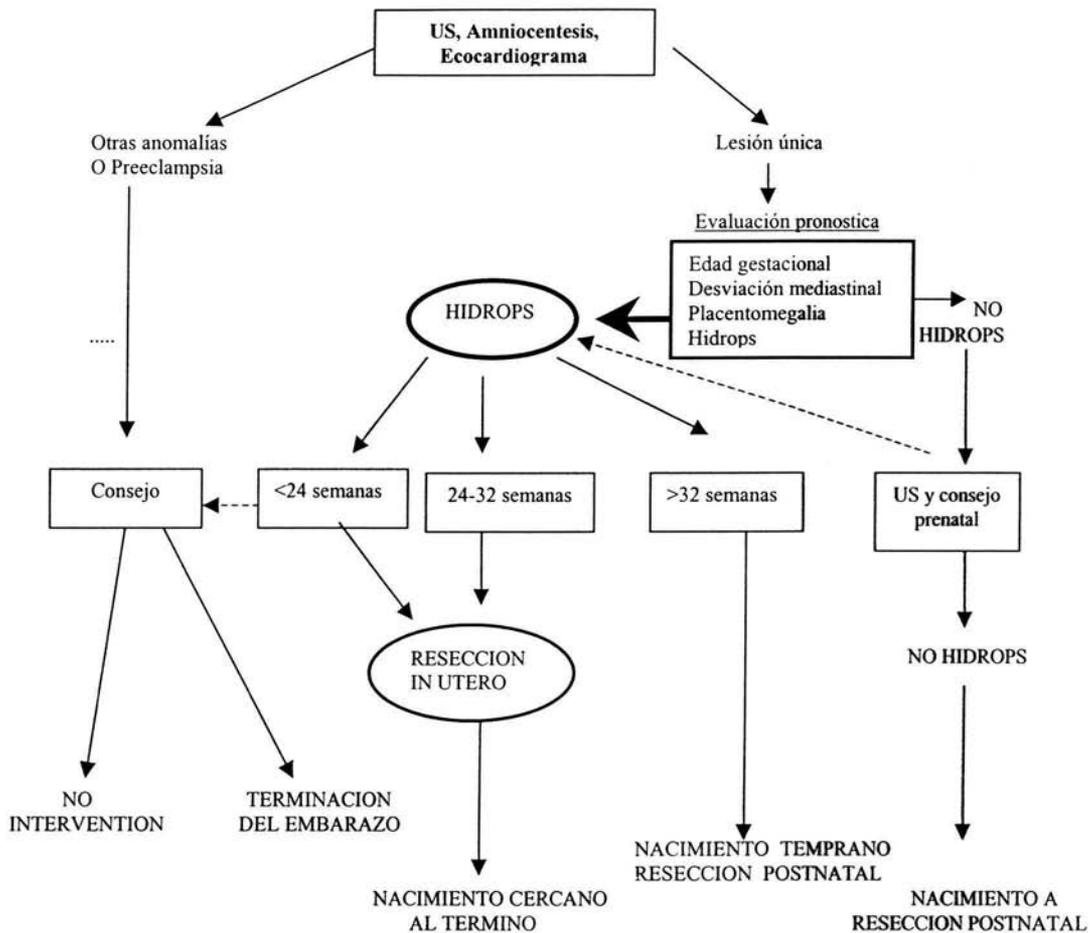


Fig. 2. Algoritmo para el manejo de fetos con MAQC³²

El campo de la cirugía fetal a cambiado sustancialmente durante las últimas dos décadas.

Aunque la mayoría de los defectos congénitos no pueden ser corregidos con tratamiento quirúrgico prenatal, existen patologías como las anomalías torácicas no cardíacas en las que el inicio de manejo in útero puede reducir de forma importante las condiciones adversas y con esto obtener un resultado perinatal alentador en fetos cuyo pronóstico sin tratamiento es sombrío.

Ya hemos mencionado que las series de casos que se han realizado sobre toracocentesis y derivaciones toracoamnióticas en fetos con algún tipo de las anomalías torácicas no cardíacas ya mencionadas aportan valiosa información no solamente sobre la evolución clínica y los factores pronósticos de estas patologías, sino que también podemos analizar las posibles complicaciones del procedimiento con la finalidad de tener mejores bases para seguir realizando este tipo de terapia fetal; razón por la cual consideramos importante revisar los estudios ya realizados al respecto, para obtener todos estos datos y poder establecer líneas de manejo al respecto.

Palabras clave: Malformación Adenomatoides Quística Congénita, Hidrotórax fetal, Secuestro Bronco pulmonar, Toracocentesis fetal, Terapia intrauterina, Quiste pulmonar fetal, Derivación Toracoamniótica, Hidropesía fetal.

OBJETIVO: Evaluar de forma cualitativa el efecto de las derivaciones toracoamnióticas y la toracocentesis en la supervivencia de fetos con anomalías torácicas no cardíacas.

Criterios de selección

Fueron seleccionados aquellos artículos que describieran Toracocentesis y derivación toracoamniótica como tratamiento in útero en fetos con anomalías torácicas no cardíacas.

Fuente de datos

Los artículos fueron identificados a través de la búsqueda en la base de datos MEDLINE (1980-2003), Ovid y en la base Cochrane utilizando las palabras clave: Cystic Adenomatoid Malformation, Hydrothorax, Secuestro Broncopulmonar, Toracocentesis fetal, Fetal therapy, Quiste pulmonar fetal, Thoracoamniotic shunts, Hidropesía fetal, Fetal surgery.

Se realizó además una revisión manual de las referencias citadas en los artículos que se localizaron en las fuentes anteriores y en libros de texto sobre el tema, además de comunicación con los principales autores expertos en el tema para la obtención de datos adicionales.

Se incluyeron únicamente artículos en idioma Inglés.

Descripción de los estudios

Se identificaron un total de 22 artículos a partir de la estrategia de búsqueda. Encontrando 15 series de casos y 7 reportes de un caso.

Todos los estudios fueron incluidos.

En los estudios series de casos se reportaba al menos un feto en el que se hubiera realizado uno de los tratamientos analizados.

- **Población:** Artículos que describieran casos de fetos con anomalías torácicas no cardíacas y tratamiento in útero.
- **Intervención:** Tratamiento con derivación toracoamniótica y toracocentesis.
- **Resultados:** Sobrevida perinatal.
- **Diseño de los estudios:** Solo se encontraron reportes de casos (Nivel de evidencia 4).

NIVELES DE EVIDENCIA EN ESTUDIOS DE TERAPIA	
NIVEL DE EVIDENCIA	DISEÑO DEL ESTUDIO
1a	Revisiones Sistemáticas de ICA ^a
1b	ICA individuales
1c	Todo o nada*
2a	Rs de estudios de cohorte
2b	Estudios individuales de cohorte
2c	Resultados de investigaciones**
3a	Rs de estudios de casos y control
3b	Estudios de casos control individuales
4	Serie de casos
5	Opinión de expertos, consenso general

*Cuando todos los pacientes murieron antes de la aplicación del tratamiento, pero ninguno sobrevivió con el tratamiento o cuando algunos pacientes murieron antes del tratamiento, pero ninguno se muere con el.

**Usa datos entendidos como buenos trabajos de tratamientos en pacientes y poblaciones específicas, y bajo condiciones específicas.

^aInvestigaciones clínicas aleatorizadas.

RS revisiones sistemáticas

RESULTADOS

Se incluyeron 22 artículos publicados en los cuales se describen 388 casos de **anomalías** torácicas no cardíacas (MAQC, SBP e Hidrotórax fetal). Todas las lesiones fueron diagnosticadas prenatalmente por ultrasonido.

MALFORMACIÓN ADENOMATOIDEA QUISTICA CONGENITA

Un total de 308 fetos tuvieron diagnóstico prenatal de MAQC (79.5%). En 34 casos se interrumpió el embarazo en etapas tempranas a petición de los padres. 19 de **estos** fetos presentaban hidrops, 4 tenían alteraciones estructurales, y un feto tenía cariotipo 47 XXY.

En 274 casos los padres decidieron continuar el embarazo después de establecido el diagnóstico. 4 de estos fetos presentaban lesión bilateral, lo que por algunos autores ha sido considerado como pronóstico adverso, sin embargo solo en uno de estos casos se inició manejo in útero y sobrevivió. Los 3 fetos con manejo conservador fallecieron in útero.

En 202 casos se optó por manejo conservador únicamente con seguimiento ultrasonográfico.

En 24 casos se observó remisión espontánea de la lesión (11.8%), 15 de **estos fetos** con remisión total de la lesión y en 9 una regresión relativa de la lesión que requirió lobectomía al nacimiento.

32 fetos con manejo conservador presentaban datos de hidrops, lo que los hacía pacientes idóneos para manejo in útero sin embargo en la mayoría de los casos este no se llevó a cabo por negativa de los padres por lo que únicamente fueron vigilados con ultrasonido seriado; de estos pacientes ninguno sobrevivió.

De los 202 fetos con manejo conservador 115 sobrevivieron (56.9%), 76 de ellos (66%) fueron sometidos a resección de la lesión posterior al nacimiento.

72 fetos recibieron manejo in útero. 46 de estos pacientes presentaban hidrops; a 18 se les colocó DTA con una sobrevida del 50% (9 casos), 2 fueron manejados con toracocentesis; ambos sobrevivieron y a 26 fetos se les realizó toracotomía con una sobrevida del 57.6% (15 casos). 26 fetos que recibieron manejo in útero no presentaban hidrops; a 14 se les colocó DTA con una sobrevida del 50% (7 casos), 8 fueron manejados con toracocentesis con una sobrevida del 50% (4 casos) y a 4 se les realizó toracotomía, ninguno de estos fetos sobrevivió. En 2 casos de DTA y uno de toracotomía los autores no especifican claramente el resultado perinatal por lo que no podemos incluirlos en ningún rubro.

Es importante aclarar que la cirugía fetal abierta no forma parte de los tratamientos analizados en la presente revisión, sin embargo consideramos de suma importancia tomar en cuenta en nuestra descripción los datos relevantes en estos pacientes con la finalidad de que en el análisis final conociéramos que había sucedido con el 100% de los pacientes identificados al inicio del estudio.

En el caso de los 78 fetos con hidrops, de acuerdo al tratamiento elegido sobrevivieron 26 (33.3%). Teniendo el mayor índice de mortalidad en los pacientes sin tratamiento (100% vs. 56.5%). (tabla 1)

32 casos presentaban desviación mediastinal en los cuales se obtuvo una sobrevida del 43.7% (14 casos).

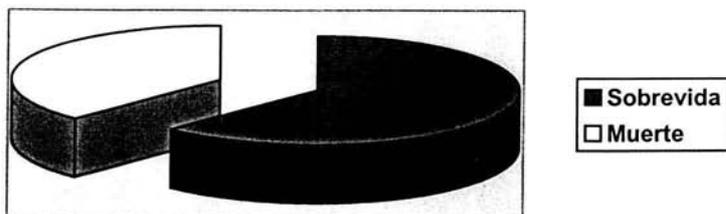
Resultado perinatal en los fetos con MAQC complicada con hidrops

Resultado Perinatal	Manejo conservador	Toracocentesis	DTA	Toracotomía	TOTAL
Sobrevida	0	2	9	15	26
Resultado adverso	32	0	9	11	52

Tabla 1

También se ha considerado importante para el resultado perinatal las semanas de gestación en las que se inicia tratamiento. De los 72 casos con MAQC y tratamiento in útero con DTA/Toracocentesis se especifica este dato en 37 casos, todos realizados antes de la semana 32 con una sobrevida del 62.1% (23 casos) y muerte fetal en el 37.8% (14 casos). Esta información se obtuvo en el 51.3% de los estudios analizados. Sería de gran utilidad hacer una comparación con el 100% de pacientes pero la gran mayoría de los estudios solo especifican datos de los casos que consideraron relevantes, y algunos otros reportan un promedio de las semanas de gestación en el momento de hacer el diagnóstico pero sin establecer diferencia entre los pacientes tratados y no tratados limitando así nuestro análisis (grafica 1).

Resultado perinatal en fetos en los que se inició terapia con DTA o toracocentesis antes de la semana 32 de gestación en fetos con MAQC



Gráfica 1

Diversos estudios han relacionado el tipo de lesión como factor pronóstico (criterios de Adzick y criterios de Stocker), por lo que es una herramienta útil (y de fácil realización) para los criterios de inclusión de pacientes a terapia in útero, sin embargo la mayoría de los estudios analizados no menciona si utilizaron alguna de estas clasificaciones, y algunos otros mencionan la clasificación utilizada pero no especifican los tipos de lesiones encontradas por lo que no podemos concluir en esta revisión su importancia como factor pronóstico al no poder hacer una comparación con el resultado perinatal.

De los artículos revisados que describen MAQC, 5 mencionan haber utilizado los criterios de Stocker y un artículo los criterios de Adzick para la clasificación de las lesiones (tabla 2).

Clasificación de los tipos de lesión en fetos con MAQC

	Clasificación Stocker	Clasificación Adzick
Revillon 1993	MAQC Tipo I : 12 casos	
	MAQC Tipo II : 15 casos	
	MAQC Tipo III: 5 casos	
Dumez 1993	MAQC Tipo I : 5 casos	
	MAQC Tipo II : 9 casos	
	MAQC Tipo III: 4 casos	
Bernascheck 1994	MAQC Tipo I: 4 casos	
Nicolaides	MAQC Tipo I: 1 caso	
Bunduki 2000		Lesiones microquisticas: 11 casos Lesiones macroquisticas: 7 casos

Tabla 2

En 13 casos con diagnóstico de MAQC se reporta la confirmación histológica de la lesión.

En otros 10 casos en los que inicialmente se tuvo diagnóstico de MAQC en el estudio histopatológico las lesiones tuvieron diagnóstico final de SBP.

Sería interesante conocer el resultado histológico en todas las lesiones para establecer en nuestro análisis cuales son susceptibles de remisión y cuales pueden progresar a hidrops fetal.

COMPLICACIONES POST-PROCEDIMIENTO

De los 72 casos de MAQC sometidos a tratamiento in útero; 4 casos presentaron APP (5.5%), RPM se presentó en 6 casos (8.3%), no se reportaron casos de infección in útero.

De estos 10 pacientes sobrevivieron 6 (60%). Es importante mencionar que estas

complicaciones pueden presentarse en embarazos con fetos sin patología aparente por lo que los autores deberían especificar en los estudios la ausencia de otro factor condicionante (como IVU o cervicovaginitis).

En 3 de estos casos se dislocó el catéter, y otro feto presentó oligohidramnios posterior al procedimiento. 2 fetos fueron manejados inicialmente con derivación toracoamniótica pero debido a la dislocación del catéter se continuó el manejo con toracocentesis seriadas. En un caso se presentó anemia fetal posterior al procedimiento que requirió transfusión intrauterina.

SOBREVIDA SEGÚN LA TÉCNICA EMPLEADA

De los 308 casos de MAQC, se interrumpieron 34 embarazos, 202 fueron manejados conservadoramente, 32 con DTA, 30 con cirugía fetal abierta y 10 con toracocentesis (tabla 3 y gráfica 2).

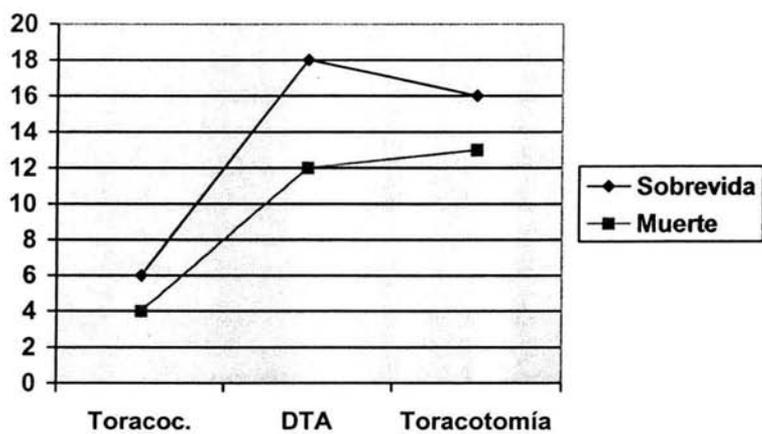
La sobrevida global fue del 56.5% (155 casos).

En 2 casos de DTA y uno de toracotomía los autores no especifican claramente el resultado perinatal por lo que no podemos incluirlos en ningún rubro (1%).

Resultado perinatal en fetos con MAQC según la técnica empleada

	Interrupción	Manejo conservador	Toracocentesis	DTA	Toracotomía	Total
	34	202	10	32	30	308
sobrevida	--	115	6	18	16	155
resultado adverso	--	87	4	12	13	116
¿?				2	1	3

Tabla 3



gráfica 2

SECUESTRO BRONCOPULMONAR

De los 388 casos encontrados en la literatura con anomalías torácicas no cardíacas, 55 casos tuvieron diagnóstico de SBP (14.2%). De estos 2 embarazos fueron interrumpidos a petición de los padres; uno con cariotipo anormal y otro con diagnóstico de Prune Belly.

47 casos fueron manejados conservadoramente únicamente con seguimiento ultrasonográfico; solo uno de estos fetos presentaba hidrops y no sobrevivió, 46 fetos no presentaron datos de hidrops ni desviación mediastinal durante el seguimiento. Todos ellos sobrevivieron. 28 de las 47 lesiones eran extralobares (59.5%) y tuvieron remisión espontánea sin evidencia de lesión al nacimiento.

En 6 casos se inició manejo in útero: 3 con toracocentesis y 3 con DTA. 4 de estos fetos presentaban hidrops al momento del tratamiento, uno de ellos presentaba además desviación mediastinal. Todos los pacientes con tratamiento invasivo sobrevivieron.

FACTORES PRONOSTICOS

5 presentaron hidrops de los cuales uno falleció (sin tratamiento in útero). Uno de los pacientes que sobrevivió presentaba además desviación mediastinal y polihidramnios.

Los 5 fetos con manejo, tenían menos de 32 semanas en el momento del tratamiento. En ningunos de estos casos se reportan complicaciones post-procedimiento.

La mayoría de los artículos no reportan si se realizó estudio histológico a la lesión.

En 7 casos con diagnóstico inicial de SBP, el diagnóstico final por histopatología fue MAQC.

SOBREVIDA SEGÚN LA TECNICA EMPLEADA

Con las decisiones tomadas por los autores se obtuvo una sobrevida del 98.1% (52 casos).

En los pacientes con tratamiento se obtuvo sobrevida del 100%, así como también en los casos sin hidrops tratados con manejo conservador (tabla 4).

Con estos resultados se refuerza la importancia de los factores pronósticos para la decisión de iniciar manejo in útero. Los fetos con hidrops que recibieron manejo invasivo tenían datos de mal pronóstico por lo que evidentemente se vieron beneficiados con dicho manejo pues todos sobrevivieron y el único feto con mal pronóstico y manejo conservador no sobrevivió. Todos los fetos que no presentaban datos de mal pronóstico fueron manejados conservadoramente y de estos solo uno falleció por complicación obstétrica (parto pretérmino) complicación que no se encontraba directamente relacionada con la patología de fondo.

Resultado perinatal en fetos con SBP según la técnica empleada

	Interrupción	Manejo conservador	Toracocentesis	DTA	TOTAL
	2	47	3	3	55
sobrevida	--	46	3	3	52
resultado adverso	--	1	0	0	1

Tabla 4

HIDROTÓRAX:

De los 388 casos, 25 fetos tuvieron diagnóstico de Hidrotórax por ultrasonido (6.4%); de los cuales 21 eran bilaterales y 4 unilaterales.

En los casos de hidrotórax fetal bilateral en los que se llevó a cabo tratamiento in útero este se realizó en ambos hemitórax, lo que presupone un mayor riesgo por las potenciales complicaciones inherentes al procedimiento.

Solamente un caso fue manejado conservadoramente, este presentaba polihidramnios y no sobrevivió.

Once fetos con polihidramnios fueron manejados in útero, a 10 de ellos se les colocó derivación toracoamniótica y a uno se realizó toracocentesis. En ninguno de los casos se reportan complicaciones post-procedimiento. Todos los fetos sobrevivieron (tabla 5).

Trece fetos presentaban hidrops, 3 de ellos con desviación mediastinal; a todos se inició manejo in útero, en 12 casos se colocó derivación toracoamniótica y a uno se le realizó toracocentesis. De los 13 fetos con hidrops 9 sobrevivieron (69.23%).

Uno de los casos con derivación toracoamniótica se complicó con sepsis posterior a la colocación del catéter y 2 presentaron ruptura prematura de membranas. Los 3 sobrevivieron.

Resultado perinatal en los fetos con Hidrotórax complicado con hidrops

Tratamiento	hidrops	polihidramnios	Hidrops y Desviación mediastinal	TOTAL
# de casos	10	12	3	25
DTA	10	10	2	22
Toracocentesis	0	1	1	2
Conservador	0	1	0	1
Sobrevida	6	11	3	20

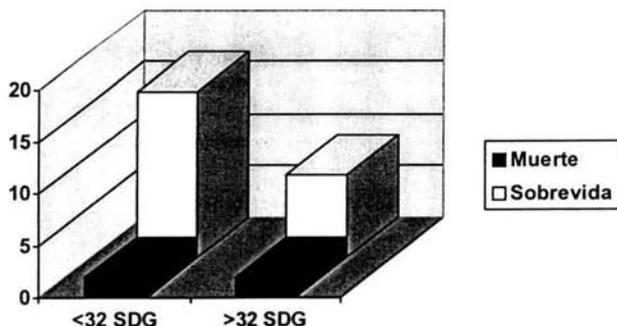
Tabla 5

16 procedimientos se realizaron antes de la semana 32 y 8 después de la semana 32 (gráfica 3).

En los fetos que fueron manejados antes de la semana 32 se obtuvo una sobrevida del 87.5% (14 casos) y en los fetos manejados después de las 32 semanas se obtuvo una sobrevida del 75% (6 casos).

Semanas de gestación en las que se inició terapia con DTA

o toracocentesis en fetos con Hidrotórax



gráfica 3

COMPLICACIONES POST-PROCEDIMIENTO

En 6 fetos se dislocó el catéter, a 3 se les continuó manejo con toracocentesis

En un feto con hidrotórax bilateral se colocaron 2 DTA, ambos catéter se dislocaron.

SOBREVIDA SEGÚN LA TÉCNICA EMPLEADA

En los 3 fetos con desviación mediastinal, se logró mejorar esta condición posterior al procedimiento, estos fetos sobrevivieron (tabla 5).

De los 5 fetos con resultado adverso; 4 presentaban hidrops y uno polihidramnios.

En 2 casos se realizó toracocentesis y ambos sobrevivieron y en 22 casos se colocó DTA con sobrevida del 81.8% (18 casos).

La sobrevida global fue del 80% (20 casos) (tabla 6).

Resultado perinatal en fetos con Hidrotórax según la técnica empleada

	Manejo conservador	Toracocentesis	DTA	TOTAL
	1	2	22	25
sobrevida	0	2	18	20
resultado adverso	1	0	4	5

Tabla 6

En total, de los 388 casos de anomalías torácicas no cardíacas, fueron manejados conservadoramente 249 fetos, y a 102 fetos se les inició manejo in útero (tabla 7).

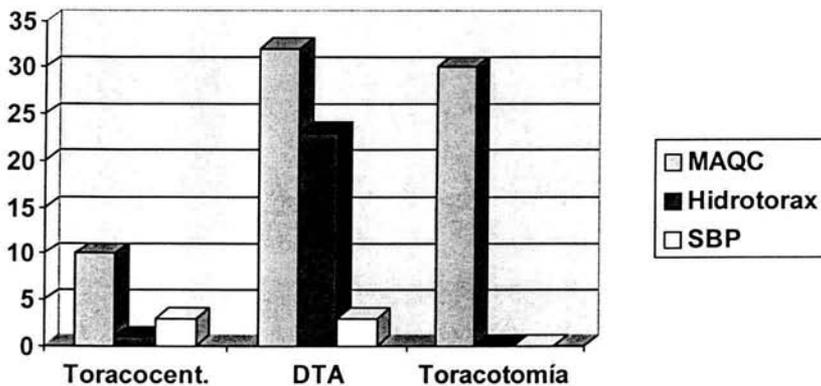
	Casos con Tx	Interrupción	Manejo conservador	TOTAL
MAQC	72	34	202	308
Hidrotorax	24	0	1	25
SBP	6	2	47	55
Total	102	36	250	388

Tabla 7

En 72 casos de MAQC, 24 casos de Hidrotórax y 6 casos de SBP se realizó manejo in útero (tabla 8 y gráfica 4).

	Toracocentesis	Derivación toracoamniótica	Toracotomía	TOTAL
MAQC	10	32	30	72
Hidrotorax	1	23	0	24
SBP	3	3	0	6
Total	14	58	30	102

Tabla 8



gráfica 4

Los criterios de selección utilizados por los autores para las intervenciones quirúrgicas se fundamentan en su gran mayoría en la identificación de factores de riesgo, los principales factores identificados como de peor pronóstico fueron: hidrops fetal, polihidramnios y desviación mediastinal.

Se identificó al hidrops como el principal factor pronóstico adverso para los fetos con anomalías torácicas no cardíacas; con una sobrevida del 55.7% (tabla 9).

Sobrevida en los fetos con Anomalías Torácicas no cardíacas
complicada con hidrops

Tratamiento	MAQC	Hidrotórax	SBP	TOTAL
Manejo conservador	0 de 32	--	0 de 1	0
DTA	9(100%)	8(66.6%)	2 (100%)	19(82.6%)
Toracocentesis	2(100%)	1(100%)	2 (100%)	5
Toracotomía	11(73.3%)	--	--	11

Tabla 9

DISCUSION:

Gracias al avance en los estudios de diagnóstico prenatal y al mejor conocimiento de los defectos estructurales fetales cada vez es mayor el número de anomalías torácicas no cardíacas (Malformación Adenomatosa Quística congénita, Secuestro Broncopulmonar e Hidrotórax) que son diagnosticadas in útero a etapas tempranas.

Consideramos importante tomar en cuenta los procedimientos que ya han sido realizados a este respecto por la gran fuente de información que podemos obtener de ellos con el fin de tener mejores conocimientos sobre su evolución clínica, los factores implicados en la presencia de complicaciones, así como también las complicaciones que pueden presentarse debidas al procedimiento. Todo esto con el fin de establecer nuevas líneas de manejo al respecto.

En un gran número de casos estas patologías pueden llevar a una serie de eventos que eventualmente ocasionan la muerte del feto in útero (como el hidrops fetal) o muerte posterior al nacimiento (por hipoplasia pulmonar); por lo cual es de suma importancia establecer pautas de manejo en estos fetos con la finalidad de ofrecerles mejores oportunidades de supervivencia, ya que muchos de ellos sin tratamiento in útero invariablemente fallecen, en nuestra revisión pudimos reforzar la información anteriormente obtenida al respecto, ya que de los 33 fetos con hidrops y manejo conservador ninguno sobrevivió, y de los 60 fetos con terapia fetal 36 sobrevivieron (60%). Podemos de tal forma considerar los casos complicados con hidrops fetal como candidatos

idóneos para la terapia in útero, ya que de otra forma no sobrevivirían; aún cuando el manejo no nos ofrezca una sobrevida del 100%.

Se ha identificado que este tipo de lesiones pueden presentar una evolución clínica muy variable durante el seguimiento ultrasonográfico.

Esto ha podido ser evidenciado en nuestra revisión al observar los casos sometidos a manejo conservador. Durante la vigilancia fetal un buen número de fetos pueden presentar remisión espontánea de la lesión, desde reducción de su tamaño hasta una resolución completa. Podemos considerar este punto como un factor de buen pronóstico ya que evidentemente se disminuye el riesgo de presentar las complicaciones ya mencionadas como hidrops o desviación mediastinal. Generalmente estos fetos no requieren terapia in útero; pudiendo esperar hasta la valoración postnatal para evaluar la necesidad de resección posterior.

En el caso de nuestra revisión los fetos con diagnóstico de SBP fueron los que presentaron el mayor porcentaje de fetos con manejo conservador; con una sobrevida del 97.8%.

Este grupo de pacientes presentaron en forma evidente remisión espontánea de la lesión; de los 55 fetos con este diagnóstico, 46 presentaron durante el seguimiento ultrasonográfico disminución espontánea de la lesión sin evidencia de la misma al nacimiento por lo que no requirieron manejo postnatal.

En ocasiones la masa pulmonar puede crecer de manera importante, si el tamaño de la masa es lo suficientemente grande para producir desviación del mediastino puede verse afectado

el tejido pulmonar circunvecino y el pulmón contralateral, con la consecuente hipoplasia pulmonar. Este punto es muy importante a considerar sobre todo cuando los datos de desviación mediastinal se presentan en etapas tempranas del desarrollo pulmonar, razón por la cual el manejo debería instalarse lo más pronto posible. Ya mencionamos que también pueden verse afectados por compresión, el corazón y los grandes vasos produciendo alteración hemodinámica con la consecuente hidropesía fetal. Si la masa comprime el esófago puede tener como consecuencia polihidramnios al interferir en la deglución fetal. Por lo que todo estos puntos son considerados de mal pronóstico por el deterioro fetal que conllevan, por lo que es necesario instaurar terapia fetal como única oportunidad que tienen estos fetos para sobrevivir.

En nuestra revisión pudimos constatar un importante número de fetos en los que se presentaron este tipo de complicaciones y en los que se volvía imperioso el manejo in útero con la finalidad de disminuir el daño fetal y tener un mejor resultado perinatal. Al analizar nuestros resultados al respecto vemos una sobrevida prácticamente nula en los pacientes con manejo conservador que presentaron este tipo de complicaciones; y en los fetos que fueron sometidos a toracocentesis o derivación toracoamniótica se obtuvo una sobrevida del 68% lo que podemos considerar un resultado alentador tomando en cuenta que esperamos que con el avance y perfeccionamiento de estas técnicas en un futuro ese porcentaje sea todavía mayor.

En algunos otros casos se presentó con menor frecuencia polihidramnios o ascitis como únicos datos de complicaciones; en estos fetos pudimos observar mejores resultados en cuanto a sobrevida únicamente con seguimiento ultrasonográfico, aquellos casos que

evolucionaron a hidrops fetal, fueron considerados candidatos a terapia fetal, en cuyos casos se obtuvieron buen resultados perinatales.

Son muchos los factores que también pueden estar involucrados en la evolución clínica de estas lesiones y no únicamente el crecimiento de la lesión, por lo que se han realizado numerosos estudios con la finalidad de identificar parámetros susceptibles de ser modificados con la terapia fetal sin que esto conlleve más riesgo que beneficio.

Además, con los avances en el conocimiento de estas lesiones se puede identificar el grupo de pacientes que tienen mejor pronóstico al ser manejados con derivación toracoamniótica y/o toracocentesis in útero y también determinar que grupo de pacientes requieren únicamente vigilancia ultrasonográfica. Todo lo anterior es muy importante tomando en cuenta las posibles complicaciones inherentes al procedimiento.

En los fetos sometidos a terapia in útero debe tomarse en cuenta la presencia de posibles complicaciones como ruptura de membranas, parto pretérmino o sepsis, que evidentemente pueden ser un factor condicionante para el mal pronóstico. Son pocos los estudios revisados que presentaron este tipo de complicaciones, la mayoría de los estudios no reportan si tuvieron o no complicaciones por lo que no puede evaluarse de forma del todo objetiva el riesgo-beneficio de la terapia per se. En los casos que presentaron ruptura de membranas o parto pretérmino los autores deberían especificar la ausencia de otras condiciones adversas (p ej. IVU o cervicovaginitis) ya que es importante evaluar si estas complicaciones están condicionadas únicamente por el manejo; sobre todo cuando el evento no se presenta en los primeros días posterior al tratamiento.

La clasificación del tipo de lesión en los casos de MAQC también parece ser importante para el pronóstico de estos fetos.

Desde la Clasificación de Stocker para MAQC, los autores han considerado a las lesiones tipo I como las de mejor pronóstico además de que por tratarse de lesiones quísticas grandes son las más susceptibles de ser manejadas con derivaciones in útero en los casos que presenten factores pronósticos adversos, y en los casos no complicados tenemos la oportunidad de manejarlos conservadoramente con una reevaluación postnatal para resección posterior. Así mismo, las lesiones tipo III son consideradas como las de peor pronóstico ya que presentan con mayor frecuencia complicaciones como la aparición de hidropesía fetal, desafortunadamente como se tratan de lesiones microquísticas no son los candidatos idóneos para estos tipos de manejo. La información en los diferentes estudios sobre los tipos de lesión identificados nos proporcionaría datos importantes sobre su evolución clínica y pronóstico ya que podríamos comparar el resultado perinatal según el manejo empleado; sin embargo son pocos los estudios que nos proporcionan información sobre el tipo de lesión en el momento de hacer el diagnóstico por lo que no sabemos si este parámetro fue tomado en cuenta para decidir entre una u otra terapia; del mismo modo tampoco podemos analizar el tipo de comportamiento de cada lesión.

También se menciona a la clasificación de Adzick como una herramienta útil para esta toma de decisiones, además de que es factible su realización en la mayoría de los casos; Este autor identifica a las lesiones macroquísticas como las de mejor pronóstico y también las más beneficiadas con terapia de derivación y a las lesiones microquísticas como las menos frecuentes pero también las de peor pronóstico.

Sin embargo, en la práctica la mayoría de los estudios no incluye en sus investigaciones ninguna de estas clasificaciones (o al menos no lo mencionan).

Son pocos los estudios en los que se realizó examen histopatológico o de clasificación prenatal por ultrasonido. Por todas estas razones no es posible en esta revisión establecer la importancia del tipo de lesión como factor pronóstico y como consecuencia tampoco podemos determinar si tienen una evolución clínica diferente, ya que no sabemos si los investigadores las tomaron en cuenta para decidir en que fetos iniciar manejo al momento del diagnóstico. Así mismo, las lesiones que fueron resecaadas en etapa postnatal no reportan resultado de estudio histopatológico lo que nos ayudaría como confirmación de nuestra clasificación antenatal.

En la literatura se ha dado gran peso la edad gestacional en el momento del diagnóstico para decidir entre tratamiento in útero o postnatal.

En los casos en que se decide iniciar terapia fetal consideramos que la edad gestacional es de suma importancia, no solamente porque de esto depende el desarrollo de tejido pulmonar sano sino porque también nos determina el tiempo que será necesario mantener un catéter funcional en el caso de una derivación, o del número procedimientos necesarios a realizar en el caso de toracocentesis seriada. Sin embargo, no en todos los artículos se especifica el momento de inicio de tratamiento; en el caso de las publicaciones con gran número de pacientes solo se establece un promedio de la edad de manejo, pero no se presentan datos específicos entre los pacientes que sobrevivieron y los que fallecieron in útero. Aunque es evidente que la edad gestacional es un punto muy importante en el inicio de la terapia fetal,

no podemos establecer la edad gestacional idónea para el inicio de esta terapia (tomando en cuenta las etapas de desarrollo pulmonar), así como tampoco podemos determinar con certeza en que momento es preferible el nacimiento temprano con manejo postnatal.

Aunque algunos autores consideran conveniente iniciar terapia fetal en etapas tempranas del embarazo para preservar tejido pulmonar sano, y en los casos después de las 32 semanas recomiendan parto temprano posterior a la verificación de madurez pulmonar con resección postnatal; con los resultados de nuestra revisión no podemos reforzar estas opiniones.

Aunque no es tan frecuente el reporte de lesiones bilaterales, es importante tomar en cuenta este factor como pronóstico adverso ya que en el caso de pacientes que ameriten colocación de derivación se realiza en ambos hemitórax lo que puede suponer mayor riesgo de complicaciones como la dislocación del catéter.

En nuestra revisión esto se presentó con mayor frecuencia en los casos de hidrotórax fetal. De los 25 casos que encontramos reportados en la literatura 21 eran bilaterales (84%). En estos casos los autores optaron por diferentes pautas de manejo como toracocentesis seriadas en ambos hemitórax las cuales no siempre tuvieron éxito debido a la reacumulación rápida de líquido; y cuando se colocaron derivaciones toracoamnióticas, estas se realizaron en ambos hemitórax teniendo en algunas ocasiones que colocar nuevamente catéter por dislocación, en dos casos se reporta ruptura de membranas y en uno más, sepsis.

De los 72 fetos con MAQC en los que se inició manejo invasivo, la mayoría de los casos los autores no establecen las razones por las que se optó entre uno u otro manejo; teniendo pacientes con características aparentemente similares, en algunos fetos se realizó toracocentesis, en otros derivación toracoamniótica y en otros cirugía fetal abierta.

Aunque en algunos estudios parece haber cierta tendencia a ofrecer a los padres cirugía fetal abierta como primera opción, no sabemos si tenían criterios de selección bien definidos para uno u otro manejo. Son pocos los autores que mencionan que se realizaron derivaciones por negativa de los padres a la cirugía fetal abierta. Esa información sería de gran utilidad para poder comparar de forma objetiva los resultados perinatales entre cada tipo de manejo dependiendo de las características específicas en cada caso y así establecer pautas específicas para cada tratamiento. Por la revisión en la literatura acerca del comportamiento de cada tipo de lesión podemos inferir que las lesiones predominantemente sólidas (microquísticas o lesiones tipo III) con factores pronósticos adversos son candidatos a cirugía fetal abierta ya que en estos no sería de utilidad una derivación y sin tratamiento invariablemente fallecen. En los casos de lesiones quísticas grandes son mejores candidatos a derivaciones; sin embargo en estos casos tampoco especifican los autores porque a algunos fetos les fue colocada derivación toracoamniótica y porque a otros se les realizó toracocentesis seriadas. En las distintas investigaciones se ha observado que prácticamente todos los fetos con hidropesía fallecen antes del nacimiento por lo que son los candidatos ideales para tratamiento in útero sobre todo cuando son diagnosticados en etapas tempranas del embarazo. Algunos estudios han tomado como factores de mal pronóstico la presencia de desviación mediastinal ocasionada por lesiones que ocupan la mayor parte del tórax fetal ya que pueden ocasionar hipoplasia pulmonar.

En la toma de decisión entre derivación toracoamniótica y toracocentesis pueden estar involucrados muchos factores que posiblemente los autores tenían bien establecidos, sin embargo al carecer de este tipo de información no podemos emitir juicios de valor al respecto.

Existen muchas otras variables que podrían ser consideradas según el grupo de pacientes que hayan estudiado cada uno de los autores, sin embargo es poca la información que tenemos al respecto, ya que los estudios son muy heterogéneos lo cual es absolutamente comprensible ya que se tratan únicamente de series de casos. En los reportes de un caso es en los cuales pudimos obtener información sobre las características de cada paciente, sin embargo en los reportes de casos, sobre todo en los que tienen gran número de pacientes esto no ha sido posible por lo que algunos datos como raza, estrato socioeconómico, edad de la paciente, número de gestas etc. no pudieron ser evaluados para establecer si interfieren o no en el resultado perinatal.

De cualquier manera, con los resultados obtenidos podemos deducir que al tener un feto con alguna de estas patologías, debe ser evaluado de forma individual e integral; según la edad gestacional a la que se diagnostica, así como el tipo de lesión y la presencia o ausencia de hidropesía fetal para decidir entre terapia fetal o manejo expectante ya que se ha visto que un gran número de anomalías remite espontáneamente.

En los casos sin factores pronósticos adversos en los que se decide manejo expectante deben realizarse revisiones ultrasonográficas seriadas para valorar crecimiento de la masa,

desviación mediastinal y presencia de hidropesía, reevaluando el caso en cada visita ya que en cualquier momento pudieran requerir de manejo in útero.

Con la información obtenida no podemos establecer hasta el momento cual manejo es el ideal; por lo que hacen falta más estudios al respecto.

Es evidente que por cuestiones éticas no es posible la realización de estudios aleatorizados, y que por esta razón aún no contamos con evidencia suficiente para criterios de selección bien establecidos; de cualquier manera los estudios de series de casos que se siguen llevando a cabo con la realización de estos procedimientos son de gran utilidad y nos seguirán aportando datos importantes para poder establecer en un futuro el manejo para estos pacientes.

Como mencionamos anteriormente, aunque nuestra revisión no está encaminada a analizar los casos en los que se realizó cirugía fetal abierta, consideramos importante mencionar sus resultados con el fin de que el lector no desconozca que ocurrió con estos fetos ya que inicialmente estaban tomados en cuenta en el número de diagnósticos realizados.

TABLAS DE REVISIONES

Características de los estudios incluidos

ESTUDIO	Beryl 1986
Métodos	Reporte de un caso
Participantes	Mujer de 37 años de edad primigesta con dx feto con derrame pleural unilateral a las 17 semanas
Intervenciones	Toracocentesis seriada (5 ocasiones)
Resultado perinatal	El embarazo se resolvió a término obteniendo un RN femenino sano sin evidencia de anomalías torácicas sin necesidad de terapia posterior.
Notas	A las 20 semanas la cantidad de fluido del lado izquierdo del tórax fetal aumentó dramáticamente, el tórax fue desplazado; se realizó toracocentesis drenando 12 ml. de líquido, durante la semana siguiente hubo reacumulación del líquido con desviación importante del mediastino apareciendo ascitis. A las 21, 22, 22.5 y 23 semanas fueron drenados alrededor de 13 ml. de líquido del hemitórax izquierdo sin complicaciones.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Seeds 1986
Métodos	Reporte de un caso
Participantes	Paciente de 31 años G2 P0, con embarazo de 30 semanas y diagnóstico de quilotórax con hidrops secundario
Intervenciones	Derivación toracoamniótica bilateral, posteriormente toracocentesis bilateral por dislocación de ambos catéteres.
Resultado perinatal	Por vía vaginal se obtuvo recién nacido femenino de 2570 gramos, Apgar 2-5, el bebé fue intubado inmediatamente y fue insertado un tubo a cada lado del tórax. No se logró determinar la etiología del hidrotórax. Los exámenes cardíaco y renal fueron normales. El bebé fue dado de alta a los 13 días y la única complicación que se presentó durante el primer año de vida fue bronquitis aguda.
Notas	Al cuarto día de la colocación toracoamniótica se presentó actividad uterina por lo que se inició manejo tocolítico.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Nicolaides 1987
Métodos	Reporte de un caso
Participantes	paciente de 23 años de edad G1 con diagnóstico fue MAQC tipo I a las 24 semanas
Intervenciones	Derivación toracoamniótica
Resultado perinatal	El embarazo progresó sin complicaciones hasta las 38 semanas, el feto masculino nació vía vaginal con peso de 3000

	grs. Apgar 8-9. El catéter fue extraído al nacimiento.
Notas	Posteriormente al nacimiento, el quiste se reexpandió con desviación mediastinal y reducción de la función pulmonar. A las 72 horas de VEU se realizó resección del lóbulo inferior del pulmón izquierdo (7x3x6 cm., con quiste de 5 cm.).
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Clark 1987
Métodos	Reporte de un caso
Participantes	Mujer de 36 años de edad con 20 semanas de gestación. Feto con quiste torácico de 10x6x6 cm. El feto presentaba hidrops con ascitis masiva
Intervenciones	Derivación toracoamniótica
Resultado perinatal	A las 37 semanas se interrumpió el embarazo vía suprapúbica obteniendo recién nacido femenino, Apgar 8-9 y 2680 grs. Al momento de la publicación el paciente de 14 meses mostraba crecimiento y desarrollo normales, sin evidencia de enfermedad residual.
Notas	Durante las tres semanas posteriores a la colocación del catéter se habían resuelto por completo la ascitis, los derrames pleural y pericárdico y el edema de cuero cabelludo incrementándose la actividad fetal El examen histopatológico confirmó el diagnóstico de MAQC.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Rodeck 1988
Métodos	Serie de casos
Participantes	8 casos e hidrotórax fetal de los cuales 5 eran bilaterales. (rangos entre 20 y 34 semanas)
Intervenciones	Derivación toracoamniótica en todos los casos
Resultado perinatal	75% de sobrevida
Notas	Es importante observar que los pacientes no tienen las mismas características consideradas pronosticas; por lo que no se pueden homogeneizar los resultados.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Blott- Nicolaidis 1988
Métodos	Serie de casos
Participantes	11 fetos con derrame pleural de causa desconocida, diagnosticados entre las 22 y 35 semanas de gestación
Intervenciones	Derivación toracoamniótica
Resultado perinatal	8 fetos nacieron aproximadamente a las 16 semanas después de la colocación del catéter, sin problemas posteriores, 3 fetos murieron en el periodo neonatal
Notas	Un caso de muerte por sepsis con pseudomona podría ser considerada inherente al manejo, aunque es importante tomar en cuenta que se encontraba asociado a hidrops por lo cual tenía un mal pronóstico
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4

ESTUDIO	Ronderos-Dumit 1991
Métodos	Reporte de un caso
Participantes	Paciente de 33 años G2 P1 con embarazo de 33 semanas, feto con hidrotórax bilateral, hidrops y polihidramnios.
Intervenciones	Derivación toracoamniótica bilateral.
Resultado perinatal	Recién nacido femenino de 2750 grs., Apgar 8-9, gasometría normal. Una de las derivaciones se dislocó al nacimiento y fue retirado a las 48 horas por falta de drenaje
Notas	A las 37 semanas presentó ruptura prematura de membranas y trabajo de parto espontáneo se interrumpió el embarazo vía suprapúbica por presentación compuesta.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Neilson 1991
Métodos	Serie de casos
Participantes	Estudio retrospectivo de 10 años, en la que incluyeron a 10 pacientes diagnosticados con MAQC in útero.
Intervenciones	A un feto se le realizó toracocentesis a las 34 semanas.
Resultado perinatal	El nacimiento ocurrió 2 días después por ruptura de membranas y el feto presentó distress respiratorio, a las 3 horas de vida se realizó neumectomía, el paciente se deterioró rápidamente y falleció a las 8 horas de vida
Notas	El tratamiento redujo la compresión pulmonar y disminuyó el polihidramnios, debido a la posición y a los movimientos fetales no fue posible colocar un catéter de cola de cochino.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Kuller 1992
Métodos	Serie de casos
Participantes	22 casos con diagnóstico prenatal de MAQC
Intervenciones	A 4 fetos se colocó DTA y en 2 se realizó toracocentesis
Resultado perinatal	¿?
Notas	En 6 casos se realizó lobectomía postnatal de los cuales 4 sobrevivieron
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Becker 1993
Métodos	Reporte de un caso
Participantes	Paciente de 25 años con embarazo de 19 semanas en cuyo feto se diagnosticó hidrotórax izquierdo primario con desviación mediastinal, a las 23 semanas presentó polihidramnios e hidrops, el corazón fetal presentó compresión progresiva hacia el hemitórax derecho.
Intervenciones	Toracocentesis repetidas sin éxito por lo que se optó por colocar una derivación toracoamniótica ; este catéter se dislocó hacia la cavidad intraperitoneal materna por lo que se colocó un segundo catéter de derivación tres días después desapareciendo los datos de hidrops y de compresión cardiaca.
Resultado perinatal	A las 36 semanas de gestación presentó ruptura prematura de

	membranas y parto vaginal sin complicaciones. Se obtuvo recién nacido femenino, de 2150 grs., Apgar 9-9; fue dado de alta a los 8 días de VEU.
Notas	De las 26 a las 35 semanas de gestación se mantuvo seguimiento por US tres veces por semana. Este reporte reafirma las observaciones de otros autores que han utilizado la derivación toracoamniótica en embarazos tempranos para prevenir la progresión de la hidropesía fetal y la hipoplasia pulmonar.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Obwegeser 1993
Métodos	Reporte de un caso
Participantes	Paciente de 25 años de edad G2 P1 con 25 semanas de gestación. El feto con pulmón derecho poliúístico con áreas septadas de 6 cm.; presentaba ascitis, hidrotórax, edema periférico, signos de compresión y desplazamiento cardíaco:
Intervenciones	Toracocentesis y posteriormente derivación toracoamniótica por reacumulación de líquido, En total se realizaron 5 punciones, los intervalos entre las punciones fueron incrementando de 10 a 20 días.
Resultado perinatal	A las 36 semanas de gestación se desencadenó parto pretérmino. Un recién nacido femenino de 3035 grs., Apgar 7-9. Tres días después le fue realizada lobectomía del pulmón derecho cursando un postoperatorio sin complicaciones y con un desarrollo posterior normal.
Notas	A partir de la primera punción se logró la descompresión del corazón fetal con la aspiración de 52 ml. evacuando completamente el quiste; tres días después se resolvieron tanto la ascitis como el edema periférico. El examen histológico confirmó el diagnóstico de MAQC tipo I.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Adzick, Harrison 1993
Métodos	Serie de casos
Participantes	Estudio de 4 años en el cual tuvieron 9 casos de MAQC.
Intervenciones	
Resultado perinatal	De los 9 fetos 6 sobrevivieron con un peso al nacimiento entre 1050 grs. y 2800 grs. y con una edad gestacional de 26 a 38 semanas.
Notas	En este estudio se expone de manera clara y detalla la importancia de individualizar a cada paciente para decidir cual es el manejo más adecuado para cada uno.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Dumez, Dommergues 1993
Métodos	Serie de casos
Participantes	18 casos de MAQC entre las 20 y 30 semanas de gestación; de los cuales 5 casos eran macroquistes, 9 microquistes y 4 con

ESTA TESIS NO SALE DE LA BIBLIOTECA

	hiperecogenicidad homogénea
Intervenciones	En 3 casos se decidió derivación toracoamniótica in útero para corregir el hidrops y la hipoplasia pulmonar.
Resultado perinatal	Terminación 25 SDG, muerte a las 31 SDG y nacimiento 36 semanas vivo.
Notas	Las lesiones fueron clasificadas de acuerdo con los criterios de Stocker. Además se analizaron los siguientes factores pronósticos: tamaño de la lesión, localización, cantidad de líquido amniótico, presencia o ausencia de hidrops. El tipo de MAQC fue confirmado por patología en 13 casos
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Adzick 1993 24
Métodos	Serie de casos
Participantes	22 fetos con diagnóstico de MAQC
Intervenciones	2 toracocentesis
Resultado perinatal	Ambos sobrevivieron
Notas	En ambos casos se trataba de lesiones macroquísticas. En uno de los casos se realizó el procedimiento en 2 ocasiones
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Revillon, Dommergues 1993
Métodos	Serie de casos
Participantes	Estudio de 5 años, en que diagnosticaron 32 pacientes con MAQC. La Edad gestacional al momento del diagnóstico fue entre las 16 y 38 semanas.
Intervenciones	En 4 casos se optó por derivación toracoamniótica por presenta hidrops o polihidramnios.
Resultado perinatal	2 fetos fallecieron, uno por aborto espontáneo y otro al nacimiento. De los 2 casos que sobrevivieron tampoco mencionan un seguimiento posterior al nacimiento el cual nos ayudaría a evaluar el pronóstico para la función en estos pacientes.
Notas	Las lesiones fueron clasificadas de acuerdo a los criterios de Stocker. Aunque en este estudio se cumple con criterios de inclusión al tratamiento in útero, no se describe de manera detallada a dichos pacientes, es importante saber a que edad gestacional fue colocada la derivación así como que tipo de MAQC tenían. Es importante también la evolución posterior a la colocación del catéter en el caso de los fetos con resultado adverso, para determinar si este resultado está directamente relacionado con el tratamiento o si se presentaban otros factores que pudieran haber influido de manera indirecta.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Bernaschek 1994
Métodos	Serie de casos
Participantes	Cuatro casos de MAQC tipo I, con desviación mediastinal y compresión del pulmón contra lateral (de los cuales 2

	presentaban hidrops) y 9 pacientes con hidrotórax (todos presentaban hidrops)
Intervenciones	Derivación toracoamniótica entre las 22 y 35 semanas de gestación
Resultado perinatal	MAQC: tres casos evolucionaron satisfactoriamente naciendo a las 36, 39 y 40 semanas, a los cuales se les realizó toracotomía en el primer día de VEU con desarrollo posterior normal. Caso con hidrops presentó RPM a las 22 semanas, se prolongó el embarazo a las 33 semanas, presentó insuficiencia respiratoria al nacimiento y falleció. Hidrotorax: Únicamente tres fetos sobrevivieron; 4 fallecieron in útero, y otro en la primer semana de VEU, uno más fue interrumpido por cariotipo anormal.
Notas	El artículo reporta un total de 52 derivaciones en 34 fetos (DTA, Derivación vesico-amniótica y pleuro-amniótica)
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Brown 1995
Métodos	Serie de casos
Participantes	paciente de 22 años, feto con MAQC I según la clasificación de Stocker, con Polihidramnios, hidrops no inmune y desviación mediastinal
Intervenciones	La toracocentesis fetal fue realizada 6 veces con intervalos semanales con volúmenes de líquido de 40 ml. en promedio.
Resultado perinatal	Se indujo trabajo de parto a las 34.4 semanas de gestación. Se obtuvo recién nacido de 2580 grs., Apgar 9-9. No requirió administración de oxígeno. La Rx de tórax mostró hemitórax derecho completamente ocupado por enfermedad quística con compresión visible del lóbulo superior realizándose resección. El postoperatorio cursó sin complicaciones y fue dado de alta una semana después de la toracotomía.
Notas	No mencionan a que semana de gestación se diagnosticó, esto es de suma importancia para tomarse en cuenta el pronóstico ya que por la recurrencia fueron necesarias aspiraciones subsecuentes.
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Miller 1996
Métodos	Serie de casos
Participantes	Estudio de 7 años en el que diagnosticaron 17 casos de MAQC entre las 20 y 34 semanas
Intervenciones	En uno se decidió intervención antenatal con derivación toracoamniótica a las 25 semanas por aumento rápido del tamaño del quiste con desviación mediastinal
Resultado perinatal	Sobrevida
Notas	No se reportan complicaciones post-procedimiento
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4

ESTUDIO	Dommergues 1997
Métodos	Serie de casos
Participantes	Estudio de 7 años en el que estudiaron 33 casos con diagnóstico prenatal de MAQC
Intervenciones	La derivación toracoamniótica solamente fue ofrecida en 9 casos de macro quistes con polihidramnios agudo e hidrops.
Resultado perinatal	Solamente 4 sobrevivieron; en estos el tamaño de la lesión disminuyó sustancialmente después de la terapia fetal resolviéndose el hidrops y el polihidramnios. Cinco pacientes con derivación fallecieron; todos presentaron hipoplasia pulmonar en el examen postmortem.
Notas	4 casos fueron diagnosticados postnatalmente como SBP
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Becmeur 1998
Métodos	Serie de casos
Participantes	10 fetos con diagnóstico de SBP
Intervenciones	En 1 feto se colocó DTA y en otro se realizaron toracocentesis seriadas. Al nacimiento se les realizó lobectomía.
Resultado perinatal	Ambos sobrevivieron
Notas	Se observó regresión absoluta en 5 pacientes sin tratamiento prenatal
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4
ESTUDIO	Adzick 1998
Métodos	Serie de casos (Estudio retrospectivo de 12 años)
Participantes	175 casos de lesiones fetales: 134 fetos presentaban MAQC; 41 pacientes con SBP que fueron diagnosticados entre la semana 18 y 36.
Intervenciones	Se colocaron 7 DTA
Resultado perinatal	6 fetos sobrevivieron
Notas	En esta serie hubo una mortalidad del 100% en fetos con hidrops
Nivel de evidencia	Nivel de evidencia 4

REFERENCIAS BIBLIOGRAFICAS

1. Romero, Pilu. Prenatal Diagnosis of Congenital Anomalies *The Lung*; 2000. 195-205.
2. Bianchi D, Crombleholme TM, Alton ME. Fetology. Mc Graw Hill; 2000. 289-97
3. Devine P, Malone F.. Anomalías torácicas no cardíacas en Clínicas de perinatología. 2000; 2;883-919
4. Harrison M, Evans Mark, Adzick Scott. The Unborn Patient *The Art and Science of Fetal Therapy*. W.B. Saunders Company;2001. 287-296.
5. Bunduki V, Ruano R, Marques da Silva, Miguelez J y cols. Prognosis factor associated with congenital cystic adenomatoid malformation of the luna. *Pregnan Diagn* 2000;20:459-464.
6. Tagushi T, Suita S, Yamanouchi T, y cols. Antenatal Diagnosis and Surgical Congenital Cystic Adenomatoid Malformation of the Lung. *Fetal Diagn Ther* 1995;10:400-7.
7. Adzick N, Harrison M, Crombleholme M y cols. Fetal lung lesions: Management and outcome. *Am J Obstet Gynecol* 1998;179:884-889.
8. Cass B, Crombleholme T, Howell L y coso *J Pediatr Surg* 1997;32:986-990.
9. Kuller J, Yankowitz J, Goldberg J y cols. Outcome of antenatally diagnosed cystic adenomatoid malformations. *Am J Obstet Gynecol* 1992; 167: 1038-1041.
10. Nielson B, Russo P, Laberge J, y cols. Congenital Adenomatoid Malformation of the lung: Current Management and Prognosis. *J Pediatr Surg* 1991;26:975-981.
11. Seeds J, and Bowes Watson. Results of treatment of severe fetal hydrothorax with bilateral pleuroamniotic catheters. *Obstet Gynecol* 1986;68:577-581.

12. Morin L, Crombleholme, D'Alton M. Prenatal Diagnosis and Management of Fetal Thoracic Lesions. *Semin Perinat* 1994;18:228-253.
13. Adzick N, Michael MD, Harrison MD. Management of the Fetus with a Cystic Adenomatoid Malformation. *World J Surg* 1993;17:342-349.
14. Becker R, Arabin B, Novak A y cols. Successful Treatment of Primary Fetal Hidrotorax by Long-Time Drainage from Week 23. *Fetal Diagn Ther.* 1993;8:331-337.
15. Becmeur B, Horta P, Donato L y cols. Pulmonary Secuestrations: Prenatal Ultrasound Diagnosis, Treatment, and Outcome. *J Pediatr Surg* 1998;33:492-496.
16. Aubard Y, Derouineau I, Aubard V y cols. Primary Fetal Hydrothorax: A literature Review and Proposed Antenatal Clinical Strategy. *Fetal Diagn Ther* 1998;13:325-333.
17. Obwegeser R, Deutinger J, Bernaschek G. Fetal Pulmonary Cyst Treated by Repeated Thoracocentesis. *Am J Obstet Gynecol* 1993;169:1622-1624.
18. Castillo R, Devoe L, Hamid A y cols. Nonimmune hydrops fetalis: Clinical experience and factors related to a poor outcome. *Am J Obstet Gynecol* 1986;155:812-816.
19. Kuller J, Laifer S, Tagge E y cols. Diminution in size of a fetal intrathoracic mass: Caution against aggressive in utero management. *Am J Perinatol* 1992;9:223-224.
20. Adzick N, Yoshihiro K. New Developments in fetal lung surgery. *Curr Opin Pediatr* 1999;11:193-203.
21. Roberts D, Sweeney E, Walkinshaw S. Congenital Cystic Adenomatoid Malformation of the Lung Coexisting with Recombinant Chromosome 18. *Fetal Diagn Ther* 2001;16:65-67.

22. Glaves J, Baker. Spontaneous resolution of maternal hydramnios in congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. Antenatal ultrasound features. Case report. *British J Obstet Gynecol* 1983;90:1065-1068.
23. Benacerraf B, Frigoletto F, Wilson M. Successful midtrimester thoracentesis with analysis of the lymphocyte population in the pleural effusion. *Am J Obstet Gynecol* 1986;155:398-399.
24. Hartmann H, Samuels M, Noyes J y cols. A Case of Congenital Chylotorax Treated by Pleuroperitoneal Drainage. *J Perinatol* 1994;14:313-315.
25. Dumez B, Mandelbrot L, Dommengues M y cols. Prenatal Management of Congenital Cystic Adenomatoid Malformation of the Lung. *J Pediatr Surg* 1993;28:36-41.
26. Adzick N, Martinez M, Milner R y cols. Intrathoracic Alimentary Tract Duplication Cysts Treated in utero by Thoracoamniotic Shunting. *Fetal Diagn Ther* 1998;13:343-347.
27. Schlesinger B, DiPietro M, Statter M. Utility of Sonography in the Diagnosis of Bronchopulmonary Sequestration. *J Pediatr Surg* 1994;29:52-55.
28. Roggin B, Breuer Ch, Carr S y cols. The Unpredictable Character of Congenital Cystic Lung. *J Pediatr Surg* 2000;35:801-805.
29. Nicolaides K, Thorpe-Beeston J. Cystic Adenomatoid Malformation of The Lung: Prenatal Diagnosis and Outcome. *Prenat Diagn* 1994;14:677-688.
30. Bernaschek G, Deutinger J, Hansmann M y cols. *Prenat Diagn* 1994;14:821.833.
31. Adzick N, Saltzman D, Benacerraf B. Fetal Cystic Adenomatoid Malformation of the Lung: Apparent improvement in utero. *Obstet Gynecol* 1998;71:1000-1002.
32. Adzick N, Harrison M. Management of the Fetus with a Cystic Adenomatoid

- Malformation. *World J Surg* 1993;17:342-349.
33. Brown B, Lewis D, Brouillette R, Hilman B y cols. Successful Prenatal Management of Hidrops, Caused by Congenital Cystic Adenomatoid Malformation, Using Serial Aspirations. *J Pediatr Surg* 1995;30:1098-1099.
 34. Clark SL, Vitale DJ, Minton SD, et al : Successful fetal therapy for associated with cystic adenomatoid malformation associated with second trimester hydrops. *Am J Obstet Gynecol* 157:294-295, 1987
 35. Adzick N, Milner R. Perinatal Management of Fetal Malformations amenable to surgical correction. *Current Opinión in Obstet Gynecol.* 1999;11:177-183.
 36. Harrison M, Adzick N, Jennings R y cols. Antenatal Intervention for congenital cystic adenomatoid malformation. *Lancet* 1990;336:965-67.
 37. Adzick N, Yoshihiro K, Flake W y cols. Open Fetal Surgery for Life-threatening. *Seminars Perinatol* 1999;23:448-461.
 38. Dommergues, M, Sylvestre L, Mandelbrot y cols. Congenital adenomatoid malformation of the lung: When is active fetal therapy indicated?. *Obstet Gynecol* 1997;177:953-958.
 39. Blott M, Nicolaides K y cols. Pleuroamniotic shunting for decompression of fetal pleural effusions. *Obstet Gynecol* 1988;71:798-800.
 40. Rodeck Ch, Fisk N, Fraser D y cols. Long-Term in utero drainage of fetal hydrotorax. *The New England J of Medicine* 1988;319:1135-1138.
 41. Revillon B, Plattner V, Dommergues M y cols. Congenital Cystic Adenomatoid Malformation of te Lung: Prenatal Management and Prognosis. *J Pediatr Surg* 1993;28:1009-1011.
 42. Ronderos-Dumit D, Nicolini U, Vaughan J y cols. Uterine-Peritoneal Amniotic

- fluid leakage: An unusual complication of intrauterine shunting. *Obstet Gynecol* 1991;78:913-915.
43. Deberá J, Vill M, Izquierdo L. Lung Sequestration, extralobar intrathoracic. *The Fetus*.
44. Millar B, Corteville, Langer J. Congenital Cystic adenomatoid malformation in the Fetus: Natural history and Predictors of Outcome. *J Pediatr Surg* 1996;31:805-808.
45. Nicolaides K, Blott M, Greenough. Chronic Drainage of Fetal Pulmonary Cyst. *The Lancet* 1987:618.
46. Jennings R, Adzick S, Harrison M. New Techniques in Fetal Surgery. *J Pediatr Surg* 1992;27:1329-1333.