

Neumotórax espontáneo en la edad pediátrica: factores asociados a su recidiva

P. Jiménez Arribas, S. López-Fernández, A. Laín Fernández, G. Guillén Burrieza, J. Lloret Roca

Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario Vall d'Hebron. Barcelona.

RESUMEN

Introducción. Las recurrencias de los neumotórax espontáneos (NE) son más frecuentes en niños que en adultos. Nuestro objetivo es analizar qué factores pueden estar asociados a su recidiva.

Material y métodos. Análisis retrospectivo de los casos de NE tratados en nuestro centro entre 2004 y 2014. Se utilizaron métodos estadísticos (χ^2 y regresión logística) para identificar factores asociados a su recurrencia analizando edad, sexo, lateralidad, tamaño del neumotórax y tratamiento recibido.

Resultados. Se recogieron 81 episodios en 43 pacientes (29 hombres, 14 mujeres): 50 primarios y 31 secundarios (14 pacientes: 10 procesos bronquíticos, 1 displasia broncopulmonar, 1 fibrosis quística y 2 fibrosis pulmonares) con una mediana de edad de 15,1 años (0,5-18,59). El seguimiento fue de 3,52 años (0,21-9,93). Veintitrés casos (28,4%) fueron intervenidos (22 toracoscopias, 1 toracotomía), realizándose resección de bullas asociada a pleurodesis abrasiva. La tasa de recidiva ipsilateral tras la cirugía fue del 21,7% (22,2% en los primarios y 20% en los secundarios, $p = 0,92$) y del 41,4% en pacientes no intervenidos ($p = 0,096$). La edad se comportó como factor de riesgo para la recidiva ($p = 0,049$; OR = 1,16), principalmente entre los 10 y los 15 años (44,6% frente al 19%, $p = 0,013$). El sexo masculino y el tamaño > 20% se asociaron a la recidiva de los NE secundarios no intervenidos ($p < 0,05$).

Conclusiones. Las recurrencias de los NE en niños son frecuentes incluso tras la cirugía. La preadolescencia y el inicio de la adolescencia, el sexo masculino y el tamaño inicial del neumotórax pueden ser factores asociados a un mayor índice de recidiva

PALABRAS CLAVE: Neumotórax espontáneo; Recidiva; Toracoscopia; Bullas.

SPONTANEOUS PNEUMOTHORAX IN CHILDREN: FACTORS ASSOCIATED WITH THEIR RECURRENCE

ABSTRACT

Introduction. Recurrence of spontaneous pneumothorax (SP) is more frequent in pediatric patients. The purpose of our study was to identify factors associated with this recurrence.

Material and methods. Retrospective review of the chart of patients with SP treated at our institution between 2004 and 2014. Statistic methods (χ^2 and logistic regression) were used analyzing age, gender, side and size of pneumothorax and therapeutic approach as possible predictive factors of SP recurrence.

Results. A total of 81 SP cases in 43 patients (29 men, 14 women) were reviewed: 50 primary (PSP) and 31 secondary (SSP). Median age at presentation was 15,1 years (0,5-18,59). Follow up was 3,52 years (0,21-18,59). Twenty-three cases (28,4%) underwent surgery (22 thoracoscopies, 1 thoracotomy), consisting of bleb resection with abrasive and chemical pleurodesis. Ipsilateral recurrence after surgery was 21,7% (22,2% in PSP, 20% in SSP, $p = 0,096$) and 41,4% after non-surgical treatment. Age was a risk factor for recurrence ($p = 0,049$; OR = 1,16), especially between 10 and 15 years (44,6% in front of 19%, $p = 0,013$). Male gender and size > 20% were associated with higher recurrence risk in SSP that received non-surgical treatment ($p < 0,05$).

Conclusions. Recurrences of SP in children are frequent even after surgical treatment. Age (preadolescence and early adolescence), male gender and initial size of pneumothorax may be factors associated with higher recurrence risk.

KEY WORDS: Spontaneous pneumothorax; Recurrence; Thoracoscopy; Blebs.

Correspondencia: Dr. P. Jiménez Arribas. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario Vall d'Hebron. Passeig de la Vall d'Hebron, 119-129. 08035 Barcelona.

E-mail: pjimenez@vhebron.net

Trabajo presentado en el 55º Congreso Nacional de Cirugía Pediátrica.

Recibido: Mayo 2016

Aceptado: Agosto 2016

INTRODUCCIÓN

El neumotórax espontáneo (NE) consiste en la acumulación de aire en la cavidad pleural tras la rotura de bullas subpleurales sin un desencadenante claro. Se denominan primarios cuando suceden en pacientes sin patología respiratoria de base y secundarios cuando ocurren en pacientes en los que subyace alguna patología pulmonar. La incidencia del NE varía según series entre 7,4 a 28 casos por cada 10.000 hombres y 1,2-6 casos por cada 100.000 mujeres⁽¹⁾ siendo

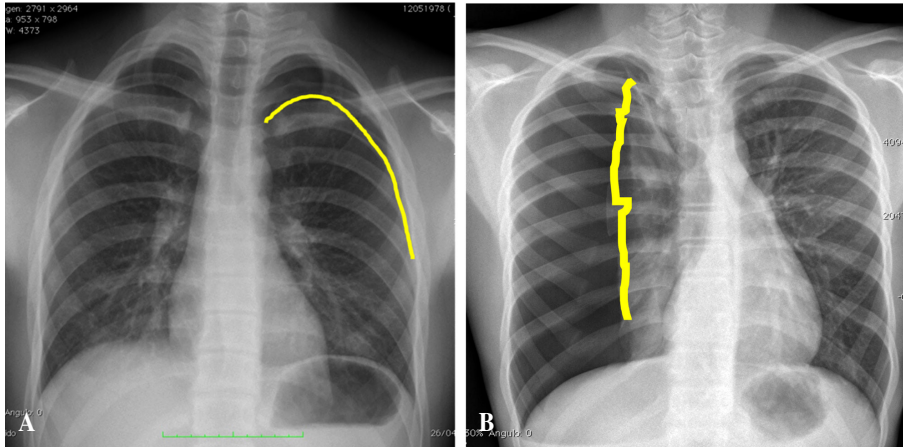


Figura 1. Neumotórax según su tamaño. A) Neumotórax < 20%. B) Neumotórax > 20%.

más frecuente en varones, adolescentes o adultos jóvenes, de fenotipo asténico y fumadores⁽²⁾.

En lo referente a su tratamiento, en pacientes de edad pediátrica se suelen seguir las mismas recomendaciones establecidas en pacientes adultos⁽³⁾, aunque no existen guías específicas para los niños. El manejo del primer episodio de NE es generalmente conservador (observación y oxigenoterapia) o colocación de drenaje pleural, mientras que en caso de fuga aérea persistente o recidiva está indicada la intervención quirúrgica (resección de bullas ± pleurodesis), generalmente mediante abordaje toracoscópico⁽¹⁾, que implica menor estancia hospitalaria y menor dolor postoperatorio con una tasa de recidiva similar a la toracotomía^(4,5).

En la edad pediátrica la recidiva tras el primer episodio es mayor que en los adultos (50-60% frente al 30%)⁽⁶⁾. Algunas series sugieren una tasa de recidiva tras la intervención quirúrgica superior en pacientes pediátricos, pero no existen estudios concluyentes al respecto. El objetivo de nuestro trabajo es valorar nuestra experiencia en el tratamiento de los NE en edad pediátrica así como tratar de determinar factores asociados a su recidiva.

MATERIAL Y MÉTODOS

Estudio retrospectivo de los casos de NE tratados en nuestro centro entre los años 2004 y 2014, excluyendo los casos de neumotórax yatrogénicos, traumáticos o asociados a empiema.

El diagnóstico, tras la sospecha clínica, se confirmó mediante radiografía de tórax, clasificando los NE en función de su tamaño (Fig. 1) mediante la fórmula de Light en neumotórax de gran tamaño (> 20% del volumen total del hemitórax) y de pequeño tamaño (< 20% del volumen total del hemitórax). El tratamiento inicial consistió en oxigenoterapia y observación clínica con control radiológico en neumotórax pequeños poco sintomáticos, reservando la colocación de drenaje pleural a los casos de neumotórax grandes (> 20%), progresivos y/o sintomáticos. La intervención quirúrgica se indicó en los casos de fuga aérea persistente (> 5 días) tras colocación de

drenaje pleural durante el primer episodio y en las recidivas ipsilaterales o contralaterales tras un primer episodio resuelto, generalmente previa realización de tomografía computarizada (TC) de tórax (a fin de identificar la presencia de bullas u otra patología subyacente, congénita o adquirida, que justificase etiológicamente el NE).

El tratamiento quirúrgico se realizó mediante toracoscopia, idealmente con intubación selectiva, y consistiendo en la resección con endograpadora de las zonas del parénquima pulmonar con bullas u otras alteraciones identificables junto con pleurodesis mecánica (abrasión directa de la pared torácica con rascador de electrobisturí) y química (solución alcohólica de povidona yodada), dejando un drenaje pleural en el acto quirúrgico que se mantuvo un mínimo de 48 horas, y siendo retirado tras constatar el cese de la fuga aérea junto con una expansión pulmonar completa en los estudios radiológicos. El seguimiento de los pacientes tras el alta hospitalaria se realizó en consultas externas mediante controles clínicos y radiológicos (radiografías simples) a la semana del alta y a los 3 meses, salvo episodios intercurrentes, añadiendo un nuevo control 6 meses después en los pacientes intervenidos antes de dar el alta definitiva.

Los datos recogidos incluyeron datos demográficos (edad, género, peso), comorbilidades, (respiratorias y no respiratorias), clínica asociada, lateralidad y tamaño del neumotórax (según la fórmula de Light), tratamiento inicial y evolución posterior, pruebas de imagen realizadas, indicaciones quirúrgicas, hallazgos intraoperatorios, tratamiento quirúrgico realizado, resultados anatomopatológicos (en los casos de resección pulmonar) y evolución postoperatoria incluyendo recidivas ipsilaterales y/o contralaterales y su tratamiento. La recogida de datos se realizó mediante la revisión de la historia clínica de los pacientes hasta el momento del estudio, tanto durante el control en consultas externas como tras el alta definitiva a fin de detectar posibles nuevos episodios no tratados en nuestro servicio.

Para las comparaciones entre grupos se utilizaron pruebas estadísticas no paramétricas (χ^2) considerando aisladamente todos los episodios de NE, enfrentando la presencia o no de recidiva al resto de variables cualitativas (para el análisis se

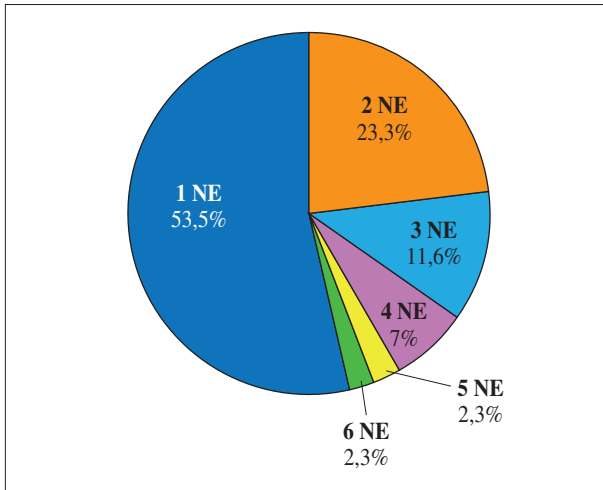


Figura 2. Número de episodios de neumotórax presentados por los pacientes (NE = neumotórax espontáneo).

consideró recidiva el primer episodio ipsilateral y/o contralateral de NE tras el episodio estudiado); en el caso de variables cuantitativas como la edad los valores se agruparon a fin de poder establecer comparaciones entre grupos. En un segundo paso se realizaron comparaciones mediante test de regresión logística para determinar el grado de asociación entre la recidiva y algunas de las variables analizadas. Para los análisis se utilizó el paquete estadístico SPSS considerando estadísticamente significativos los valores de $p < 0,05$.

RESULTADOS

Durante el periodo de estudio 43 pacientes (29V/14M) fueron tratados, presentándose un total de 81 episodios de NE. Veintitrés pacientes (53,5%) presentaron un solo episodio de neumotórax, 10 pacientes (23,3%) presentaron 2 episodios, 5 (11,6%) presentaron 3 y el número de pacientes que presentaron 4, 5 y 6 neumotórax fueron 3 (7%), 1 (2,3%) y 1 (2,3%) respectivamente (Fig. 2).

De los 81 episodios de NE (42 derechos, 39 izquierdos), 50 eran primarios (61,7%) y 31 secundarios (38,3%, correspondientes a 14 pacientes: 10 afectados de procesos bronquíticos en el momento del NE, 2 fibrosis pulmonares, 1 fibrosis quística y 1 displasia broncopulmonar). La mediana de edad al diagnóstico fue de 15,1 años (0,5-18,6). Clínicamente los síntomas de presentación más frecuentes fueron: dolor torácico (79,7%), dificultad respiratoria (53,2%) y tos (7,6%). Cuarenta y dos episodios (51,9%) presentaron un NE inicial $> 20\%$ según la fórmula de Light.

El manejo fue no quirúrgico (observación y oxigenoterapia o drenaje pleural) en 58 episodios (71,6%), mientras que 23 episodios (28,4%) fueron tratados de forma quirúrgica (resección de bullas o de alteraciones pulmonares identificables junto con pleurodesis). De los episodios intervenidos, 22 (95,6%) se

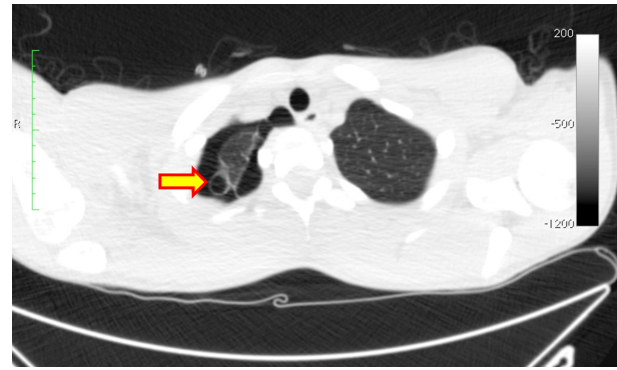


Figura 3. TC torácica donde se observa bulla subpleural (flecha).

realizaron mediante toroscopia, y un caso (4,3%) mediante torcotomía posterolateral debido a dificultades ventilatorias durante la inducción anestésica en un paciente con bronquiolitis obliterante. En un caso afecto de fibrosis quística no se realizó pleurodesis, únicamente resección de bullas y cierre de la fístula broncopleural, debido a las posibles dificultades técnicas que supondría en caso de precisar trasplante pulmonar en el futuro. De las 23 intervenciones, se objetivaron alteraciones pulmonares que se resecaron en 20, en 2 se resecó el ápex pulmonar y en 1 caso no se realizó resección pulmonar. La mediana de seguimiento fue de 3,52 años (0,21-9,93).

Se realizaron 27 TC torácicas a 24 pacientes, identificándose bullas subpleurales en 17 de ellos (63%). Se analizó la TC torácica preoperatoria de 16 episodios, objetivándose en 14 de ellos imágenes compatibles con bullas subpleurales (Fig. 3). Intraoperatoriamente en 15 de ellos se evidenciaron alteraciones pulmonares. Comparando los resultados radiológicos (TC) con la evidencia intraoperatoria de alteraciones pulmonares (Tabla I) obtenemos una sensibilidad y especificidad de la TC en cuanto a la demostración de alteraciones identificables quirúrgicamente de 93% y 100% respectivamente. El estudio anatomopatológico de 21 de las 22 resecciones pulmonares realizadas (en un caso no se localizó el resultado de dicho estudio) describió bullas subpleurales en 15 muestras (71,4%), cambios enfisematosos en 8 (38,1%), inflamación pleural en 5 (23,8%) y fibrosis subpleural en 4 (19%). Ninguna de las muestras fue descrita como parénquima pulmonar sin alteraciones.

Considerando los episodios aislados ($n = 81$), la tasa global de recidivas ipsilaterales fue del 35,8% (29 episodios) a una media de 0,23 años ($\pm 0,49$) tras el episodio inicial, y la tasa de recidivas contralaterales del 11,1% (9 episodios) a una media de 0,92 años ($\pm 0,96$) tras el episodio inicial.

En el estudio estadístico (χ^2), analizando aisladamente las recidivas ipsilaterales y comparando estas entre los episodios intervenidos quirúrgicamente y aquellos de manejo conservador o con drenaje pleural, la tasa de recidiva ipsilateral tras la cirugía (21,7%) fue menor que la de los pacientes no intervenidos (41,4%), aunque estas diferencias no fueron estadísticamente significativas ($p = 0,096$). Dentro de ambos grupos tampoco hubo diferencias estadísticamente significativas en las

Tabla I. Comparación de visualización de bullas en la TC y en la intervención quirúrgica.

		Bullas en IQ		
		Sí	No	
Bullas en la TC	Sí	14	0	14
	No	1	1	2
		15	1	16

TC: tomografía computarizada; IQ: intervención quirúrgica.

tasas de recidiva ipsilateral comparando entre NE primarios y secundarios, siendo la tasa en los episodios intervenidos del 22,2% para los primarios y del 20% para los secundarios ($p = 0,92$) y del 40,6% para los primarios y del 42,3% para los secundarios en los episodios de manejo conservador ($p = 0,89$).

En el estudio estadístico enfocado a la identificación de posibles factores asociados a la recurrencia del neumotórax (tanto ipsilateral como contralateral), el único factor que mostró asociación estadísticamente significativa fue la edad, comportándose su incremento como factor de riesgo para la recidiva en la regresión logística ($p = 0,049$; OR = 1,16). Estratificando las edades de los pacientes (Fig. 4) para poder establecer comparaciones mediante tablas de contingencia, el intervalo de edad comprendido entre los 10 y los 15 años fue el más asociado a la recurrencia del neumotórax, con una tasa del 44,6% frente al 19% en el resto de edades ($p = 0,013$).

La presencia de dolor como síntoma inicial al diagnóstico se asoció a un mayor riesgo de recurrencia ipsilateral (75% frente a 14,3%, $p = 0,024$), pero no a la recurrencia contralateral (14,6% frente a 6,7%, $p = 0,47$). Del resto de variables estudiadas, tanto global como estratificadamente analizando en conjunto y por separado los datos (primarios/secundarios e intervenidos quirúrgicamente/no intervenidos), los únicos factores que mostraron asociación estadísticamente signifi-

cativa con la recidiva ipsilateral de los NE secundarios no intervenidos fueron el sexo masculino y el tamaño inicial del neumotórax $> 20\%$ ($p = 0,017$ y $p = 0,02$ respectivamente). Salvo la edad (que se asoció a la recidiva en todos los grupos) no se identificó ningún factor con significación estadística asociado específicamente a la recidiva de los NE intervenidos.

DISCUSIÓN

La etiología principal de los NE es considerada la rotura de bullas subpleurales, por lo que el tratamiento quirúrgico enfocado como tratamiento etiológico y consistente en la resección de dichas bullas asociada a pleurodesis mecánica y/o química podría considerarse, *a priori*, el tratamiento definitivo. Este tratamiento quirúrgico ha mostrado en nuestro estudio una disminución de la tasa de recidiva del NE cercana al 20% (41,4% en pacientes no intervenidos frente a 21,7% en los intervenidos), y aunque sin ser estas diferencias estadísticamente significativas ($p = 0,096$) su nivel está próximo a la significación estadística. Este hecho también se ha demostrado en diversos estudios publicados⁽⁷⁻⁹⁾.

La tasa de recidivas encontrada, independientemente del tratamiento recibido, es superior a la descrita en la literatura referida a pacientes adolescentes y adultos, a pesar de seguir indicaciones terapéuticas y técnicas quirúrgicas similares^(6,8). Esta relación de la edad con el riesgo de recidiva ya ha sido descrita previamente, concluyendo un mayor riesgo en pacientes no adultos^(10,11), pero dentro de la edad pediátrica nuestros resultados muestran una incidencia mayor entre los 10 y los 15 años (preadolescencia e inicio de la adolescencia) frente al resto de edades pediátricas. Este dato, junto con el dato de que la mayor parte de las recidivas aparecieron durante el primer año tras el episodio previo (medias de 0,23 y 0,92 años para las recidivas ipsilaterales y contralaterales respectivamente), podría estar en relación con una etapa de cambios morfológicos y estructurales parenquimatosos acorde al desarrollo general

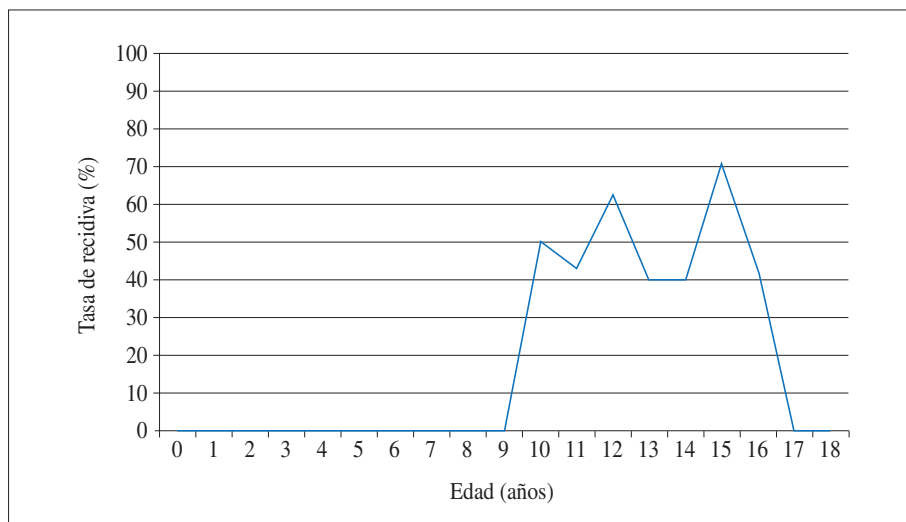


Figura 4. Gráfico estratificando la tasa de recidivas globales en función de la edad.

de los niños a estas edades, que podrían facilitar la lesión de alteraciones pulmonares preexistentes (que podrían no ser identificables durante el tratamiento quirúrgico) originando la reaparición del neumotórax. Los datos anatomopatológicos recogidos apoyarían esta teoría dada la elevada proporción de muestras con alteraciones histológicas mostradas al margen de las bullas subpleurales.

El dolor como síntoma inicial ha mostrado asociación con mayor riesgo de recidiva ipsilateral, pero la interpretación de este dato es muy relativa. El resto de factores de riesgo para la recidiva identificados como tales en nuestro estudio (el sexo masculino y el tamaño inicial > 20%) solo han mostrado asociación significativa con un subgrupo de los pacientes (NE secundarios no intervenidos), por lo que se requeriría un estudio con mayor número de casos para poder determinar realmente su importancia.

En cuanto al tratamiento quirúrgico, actualmente la toroscopia es considerada la vía de abordaje de elección en pacientes adultos, mostrando beneficios respecto a la toracotomía con unos resultados similares en términos de recurrencia^(1,3,4); la experiencia en niños es más limitada, principalmente en pacientes de corta edad, pero los resultados obtenidos en distintos estudios hacen equiparable su manejo al de los pacientes adultos, considerándose el abordaje toroscópico como el *gold standard* también en edad pediátrica^(7,11), reservando la toracotomía para casos seleccionados. En nuestra serie, salvo un caso que por dificultades ventilatorias del propio paciente se optó por el abordaje abierto al considerarse de menor riesgo durante la intervención, el resto de las intervenciones se realizaron por vía toroscópica sin constatar dificultades ni complicaciones específicas para la identificación de lesiones ni para la realización del procedimiento.

La utilidad de la TC en la toma de decisiones terapéuticas también es un tema controvertido en la literatura. De las TC revisadas en el presente estudio se identificaron bullas en el 63% de ellos, lo cual es acorde con la literatura, que sitúa esta cifra entre el 45 y el 100%⁽¹²⁾. Si bien la sensibilidad y especificidad de la prueba comparada con los hallazgos quirúrgicos es elevada (93 y 100% respectivamente) en nuestra serie, hay que tener en cuenta que el número de pacientes es limitado y que no todos los pacientes con TC fueron intervenidos, por lo que la fiabilidad de estos datos es relativa. Los estudios previos muestran discrepancias en cuanto a la utilidad de la TC, desde su uso generalizado para la detección de bullas y consecuentemente establecer la indicación quirúrgica⁽¹³⁻¹⁵⁾ hasta su escasa utilidad a la hora de indicar una intervención⁽¹⁶⁾. En nuestra opinión, si bien la indicación quirúrgica es clínica, la TC es una ayuda complementaria importante a la hora de tomar decisiones, debiendo considerarse su realización en todos los pacientes previamente a la intervención quirúrgica.

En conclusión, la recurrencia de los NE en la edad pediátrica es frecuente, y superior a la descrita en pacientes adultos. La intervención quirúrgica reduce el riesgo de recidiva, pero a pesar de ello su tasa de recurrencia sigue siendo elevada. Dentro de la edad pediátrica la preadolescencia y el inicio de

la adolescencia (10-15 años) son las etapas asociadas a un mayor riesgo de recidiva.

BIBLIOGRAFÍA

1. Shaw KS, Prasil P, Nguyen LT, Laberge J-M. Pediatric spontaneous pneumothorax. *Semin Pediatr Surg.* 2003; 12: 55-61.
2. Robinson PD, Cooper P, Ranganathan SC. Evidence-based management of paediatric primary spontaneous pneumothorax. *Paediatr Respir Rev.* 2009; 10: 110-7; quiz 117.
3. MacDuff A, Arnold A, Harvey J, BTS Pleural Disease Guideline Group. Management of spontaneous pneumothorax: British Thoracic Society Pleural Disease Guideline 2010. *Thorax.* 2010; 65 Suppl 2: ii18-31.
4. Ozcan C, McGahren ED, Rodgers BM. Thoracoscopic treatment of spontaneous pneumothorax in children. *J Pediatr Surg.* 2003; 38: 1459-64.
5. Butterworth SA, Blair GK, LeBlanc JG, Skarsgard ED. An open and shut case for early VATS treatment of primary spontaneous pneumothorax in children. *Can J Surg J Can Chir.* 2007; 50: 171-4.
6. Chiu C-Y, Chen T-P, Wang C-J, Tsai M-H, Wong K-S. Factors associated with proceeding to surgical intervention and recurrence of primary spontaneous pneumothorax in adolescent patients. *Eur J Pediatr.* 2014; 173: 1483-90.
7. Bialas RC, Weiner TM, Phillips JD. Video-assisted thoracic surgery for primary spontaneous pneumothorax in children: is there an optimal technique? *J Pediatr Surg.* 2008; 43: 2151-5.
8. Muramatsu T, Nishii T, Takeshita S, Ishimoto S, Morooka H, Shiono M. Preventing recurrence of spontaneous pneumothorax after thoracoscopic surgery: a review of recent results. *Surg Today.* 2010; 40: 696-9.
9. Gossot D, Galetta D, Stern JB, Debrosse D, Caliandro R, Girard P, et al. Results of thoracoscopic pleural abrasion for primary spontaneous pneumothorax. *Surg Endosc.* 2004; 18: 466-71.
10. Muramatsu T, Shimamura M, Furuichi M, Nishii T, Takeshita S, Ishimoto S, et al. Cause and management of recurrent primary spontaneous pneumothorax after thoracoscopic stapler blebectomy. *Asian J Surg Asian Surg Assoc.* 2011; 34: 69-73.
11. Choi SY, Kim YH, Jo KH, Kim CK, Park JK, Cho DG, et al. Video-assisted thoracoscopic surgery for primary spontaneous pneumothorax in children. *Pediatr Surg Int.* 2013; 29: 505-9.
12. O'Lone E, Elphick HE, Robinson PJ. Spontaneous pneumothorax in children: when is invasive treatment indicated? *Pediatr Pulmonol.* 2008; 43: 41-6.
13. Laituri CA, Valusek PA, Rivard DC, Garey CL, Ostlie DJ, Snyder CL, et al. The utility of computed tomography in the management of patients with spontaneous pneumothorax. *J Pediatr Surg.* 2011; 46: 1523-5.
14. Young Choi S, Beom Park C, Wha Song S, Hwan Kim Y, Cheol Jeong S, Soo Kim K, et al. What factors predict recurrence after an initial episode of primary spontaneous pneumothorax in children? *Ann Thorac Cardiovasc Surg Off J Assoc Thorac Cardiovasc Surg Asia.* 2014; 20: 961-7.
15. Chung PHY, Wong KKY, Lan LCL, Tam PKH. Thoracoscopic bullectomy for primary spontaneous pneumothorax in pediatric patients. *Pediatr Surg Int.* 2009; 25: 763-6.
16. Seguier-Lipszyc E, Elizur A, Klin B, Vaiman M, Lotan G. Management of primary spontaneous pneumothorax in children. *Clin Pediatr (Phila).* 2011; 50: 797-802.