

Linfangiografía intranodal en quilotórax pediátrico, una herramienta diagnóstica y terapéutica

J. Jiménez Gómez¹, M. Gómez Cervantes¹, V. Núñez Cerezo¹, V. Amesty Morello¹, M.D. Ponce Dorrego², F.B. Nava Hurtado de Saracho¹, L. Martínez Martínez¹, J.C. López Gutiérrez¹

¹Departamento de Cirugía Pediátrica; ²Unidad de Radiología Vascul ar e Intervencionista, Servicio de Radiodiagnóstico. Hospital Universitario La Paz, Madrid.

RESUMEN

Introducción. El quilotórax secundario es una entidad rara con una alta morbilidad. La embolización del conducto torácico (CT) mediante linfangiografía intranodal (LI) con aceite etiodizado (AE) forma parte del arsenal terapéutico del quilotórax en el adulto. Presentamos nuestra experiencia con esta técnica en pacientes pediátricos con quilotórax refractario al tratamiento médico.

Métodos. Estudio retrospectivo de los pacientes tratados en nuestro centro por quilotórax refractario con LI en los últimos 4 años. Se recogieron los datos epidemiológicos, clínicos, terapéuticos y linfangiográficos.

Resultados. Se identificaron 4 pacientes, con unas medianas de edad y peso de 2,5 meses (1-16) y 4,25 kg (2,8-10) respectivamente. En 3 de los pacientes el quilotórax fue secundario a cirugía cardiaca y en el restante a trombosis extensa de vena cava superior. La mediana de débito fue de 46 ml/kg/día (19-64) y la de tiempo de tratamiento médico de 47 días (13-56). En todos ellos se realizó LI, opacificándose el CT solo en un paciente, sin lograrse la embolización. A pesar de ello, tras la LI, el quilotórax cesó en el grupo postquirúrgico independientemente del nivel de opacificación del árbol linfático. En el paciente secundario a trombosis, se realizó ligadura quirúrgica del CT 6 días después del estudio.

Conclusiones. La LI es una técnica diagnóstica e incluso terapéutica en casos de quilotórax refractario, que comienza a ser necesaria y realizable en centros con experiencia. El AE parece sellar la fuga linfática por un mecanismo embolizante en casos postquirúrgicos, eliminando la necesidad del cierre quirúrgico.

PALABRAS CLAVE: Quilotórax; Linfangiografía intranodal; Aceite etiodizado; Niños.

INTRANODAL LYMPHANGIOGRAPHY IN PEDIATRIC CHYLOTHORAX, A DIAGNOSTIC AND THERAPEUTIC TOOL

ABSTRACT

Introduction. High morbidity has been described in secondary chylothorax. Thoracic duct embolization (TDE) after intranodal lymphangiography (IL) is one of the treatments in adults but there is poor

experience in children. We aim to describe our experience with this technique for refractory pediatric chylothorax.

Methods. A retrospective study of patients with refractory chylothorax treated with thoracic duct embolization at our Institution in the last 4 years was performed. Lymphatic vessels visualization was obtained by intranodal lymphangiography with ethiodized oil. Demographic and clinical data as well as imaging findings were collected.

Results. A total of 4 patients were treated during the study period with a median of age and weight of 2.5 months (1-16) and 4.25 kg (2.8-10) respectively. Chylothorax was secondary to cardiothoracic surgery in 3 patients and to venous thrombosis in the other one. Medical treatment was provided during a median of 47 days (13-56) without benefit in thoracic output [median: 46 ml/kg/day (19-64)]. After IL, thoracic duct catheterization was achieved in one patient however embolization was not possible. Chylothorax stopped in the 3 post-surgical patients regardless of how much lymphatic visualization was achieved in IL. In the venous thrombosis patient surgical treatment was performed 6 days after the study.

Conclusion. IL can be a diagnostic and therapeutic tool in children. Ethiodized oil seems to seal lymphatic leak in postsurgical chylothorax. IL could be an option for chylothorax in patients too sick for surgical treatment or in whom thoracic duct embolization is not feasible.

KEY WORDS: Chylothorax; Intranodal lymphangiography; Ethiodized oil; Children.

INTRODUCCIÓN

El quilotórax se define como la presencia de linfa en el espacio pleural. Su origen puede ser congénito (malformaciones del conducto torácico) o adquirido (parto traumático, cirugía, traumatismo, neoplasias, trombosis venosa).

Pese a su baja incidencia como complicación quirúrgica (0,85-6,6%)⁽¹⁾, ocasiona una gran morbilidad secundaria al compromiso de espacio en la cavidad torácica, el desequilibrio hidroelectrolítico, la pérdida nutricional y la inmunodepresión; por ello es una entidad que requiere un abordaje multidisciplinar para un correcto tratamiento (cirujanos, intensivistas, anestesiólogos, neonatólogos, radiólogos y gastroenterólogos).

El tratamiento inicial consiste en la colocación de un drenaje torácico que permita la ventilación pulmonar y el sellado de

Correspondencia: Dr. Javier Jiménez Gómez. Hospital Universitario La Paz. Departamento de Cirugía Pediátrica. Paseo de la Castellana, 261. 28046 Madrid. E-mail: j.jimenez.gomez.89@gmail.com

Recibido: Mayo 2018

Aceptado: Diciembre 2018

Tabla I. Datos epidemiológicos, clínicos y de imagen.

Paciente	A	B	C	D
Edad (meses)	1	16	4	2
Peso (kg)	2,8	10	4	4,5
Etiología	Postquirúrgica	Postquirúrgica	Postquirúrgica	Trombosis venosa
Media de débito (ml/kg)	56,6 ± 33,3	64,45 ± 19,7	31,7 ± 28,63	19 ± 22,14
Días hasta el estudio	56	13	54	40
Opacificación árbol linfático	No opacificación	Vasos linfáticos intraabdominales	Conducto torácico	Ganglios inguinales

la pleura, asociado a octreótido, así como, reposición hidroelectrolítica y modificaciones nutricionales (aporte exclusivo de ácidos grasos de cadena media o dieta absoluta según el débito).

El fracaso del tratamiento médico sienta la indicación quirúrgica. El procedimiento consiste en la ligadura del conducto torácico, que puede ir acompañada de pleurodesis del hemitórax afecto o de la colocación de un drenaje pleuroperitoneal⁽²⁾.

La embolización del conducto torácico en las unidades de radiología intervencionista es una alternativa menos agresiva, que se lleva realizando en pacientes adultos, desde su descripción por Cope en 1998 con buenos resultados^(3,4). Sin embargo, el uso de esta técnica en niños se ha visto lastrada por dificultades técnicas y de equipamiento.

La introducción de la linfangiografía intranodal ha permitido el uso de esta técnica en niños al facilitar el acceso al sistema linfático a través de los ganglios inguinales en contraposición a la linfangiografía pedal que requería la canalización de un capilar linfático subcutáneo.

Nuestro objetivo es revisar nuestros resultados en pacientes con quilotórax tratados mediante embolización del conducto torácico visualizado por linfangiografía intranodal.

MATERIAL Y MÉTODOS

Se realizó un estudio retrospectivo de aquellos pacientes con quilotórax adquirido a los que se sometió a una linfografía intranodal con la intención de embolizar el conducto torácico en los últimos 4 años.

La linfografía intranodal la realizan los radiólogos intervencionistas bajo anestesia general.

El protocolo del procedimiento consiste en localizar con ayuda ecográfica un ganglio linfático inguinal e inyectar lentamente una solución de aceite etiodizado (AE); posteriormente se obtienen imágenes del árbol linfático mediante fluoroscopia^(5,6).

El AE se utiliza como medio de contraste en los estudios linfáticos porque, debido a su composición, difunde menos que los contrastes hidrosolubles a través de la pared del vaso linfático, mejorando la visualización de los mismos.

Una vez localizada la *cisterna chyli* o un vaso linfático de calibre suficiente, se realiza una canulación percutánea del

vaso con una aguja de 22G para poder acceder al conducto torácico y localizar el punto de fuga. Dependiendo del nivel y el tipo de fuga se puede realizar una embolización más o menos selectiva con pegamento, *microcoils* o una mezcla de ambos.

Actualmente, tras la infusión de AE, se emplean las nuevas técnicas de linforresonancia para el estudio anatómico de los grandes vasos linfáticos, lo cual permite un abordaje más preciso y seguro del conducto torácico⁽⁷⁾.

Se recogieron los datos epidemiológicos de todos los pacientes, así como la etiología del quilotórax, número de drenajes, débito, tratamiento médico recibido, aportes enterales y comorbilidades asociadas. También se incluyó la información del estudio linfangiográfico y la respuesta clínica posterior del paciente.

RESULTADOS

Durante el periodo de estudio, cuatro pacientes con quilotórax adquirido se sometieron a la prueba. Los datos clínicos y epidemiológicos así como el grado de opacificación durante la linfografía se describen en la tabla I.

El paciente A se diagnosticó al nacimiento de tetralogía de Fallot y presentó un quilotórax bilateral como complicación postquirúrgica de la cirugía paliativa inicial. El tratamiento médico comprendió dieta absoluta, nutrición parenteral, soporte hidroelectrolítico y administración de un ciclo de octreótido. La evolución del débito puede verse en la figura 1.

No se logró opacificar ningún ganglio inguinal con la inyección de AE. El débito del drenaje torácico disminuyó progresivamente permitiendo la retirada del tubo de tórax al 7º día postlinfografía.

El paciente B se diagnosticó a los 16 meses de compresión traqueal extrínseca secundaria a un anillo vascular. El quilotórax se presentó como complicación inmediata de la cirugía correctora. En la figura 1 se puede observar el débito del drenaje torácico. El tratamiento médico incluyó nutrición parenteral y aportes enterales de fórmulas ricas en ácidos grasos de cadena media, soporte hidroelectrolítico y administración de un ciclo de octreótido.

En la linfografía se logró visualizar los ganglios linfáticos intraabdominales pero no se consiguieron imágenes de la *cis-*

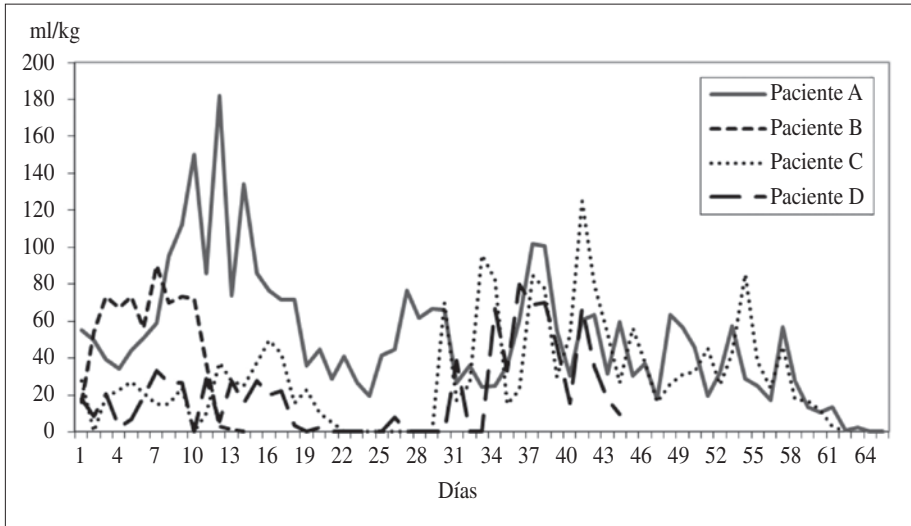


Figura 1. Débito torácico de los pacientes.



Figura 2. Secuencia de opacificación del árbol linfático. A) Ganglios linfáticos inguinales. B) Red linfática intraabdominal. C) Conducto torácico.

terna chyli o vasos linfáticos de un calibre adecuado para la canulación. El débito se redujo a cero al 2º día postlinfografía y se pudo retirar el drenaje.

El paciente C se diagnosticó al nacimiento de un canal atrioventricular presentando un quilotórax como complicación secundaria a la cirugía paliativa. Tras el tratamiento médico con nutrición parenteral, aportes enterales de ácidos grasos de cadena media, reposición hidroelectrolítica y administración de un ciclo de octreótido el quilotórax respondió inicialmente para recidivar al aumentar los aportes enterales. La evolución del débito puede observarse en la figura 1.

En la linfografía se visualizó el punto de fuga en el conducto torácico pero la embolización no fue técnicamente posible figura 2. El débito disminuyó progresivamente desapareciendo al 7º día postlinfografía.

El paciente D presentó un quilotórax secundario a trombosis de todo el territorio venoso superior tras canalización de una vía venosa central. El débito del drenaje torácico se mantuvo pese al tratamiento médico.

La linfografía permitió la visualización de vasos linfáticos de pequeño calibre hasta el nivel vertebral de L4, pero la instrumentalización del conducto no fue posible. Debido a la persistencia del quilotórax, al 6º día postlinfografía se realizó ligadura quirúrgica del conducto torácico, pleurodesis mecánica y colocación de un drenaje pleuroperitoneal (Fig. 3).

DISCUSIÓN

En este trabajo presentamos una serie de 4 pacientes con quilotórax adquirido refractario a tratamiento médico a los cuales se les realizó una linfografía intranodal con la intención de embolizar el conducto torácico. Sorprendentemente, pese a que el estudio solo se pudo completar en un paciente y en ningún caso la embolización fue posible, todos los quilotórax postquirúrgicos se resolvieron tras la prueba. En el caso del quilotórax secundario a trombosis venosa fue necesaria la ligadura quirúrgica del conducto.

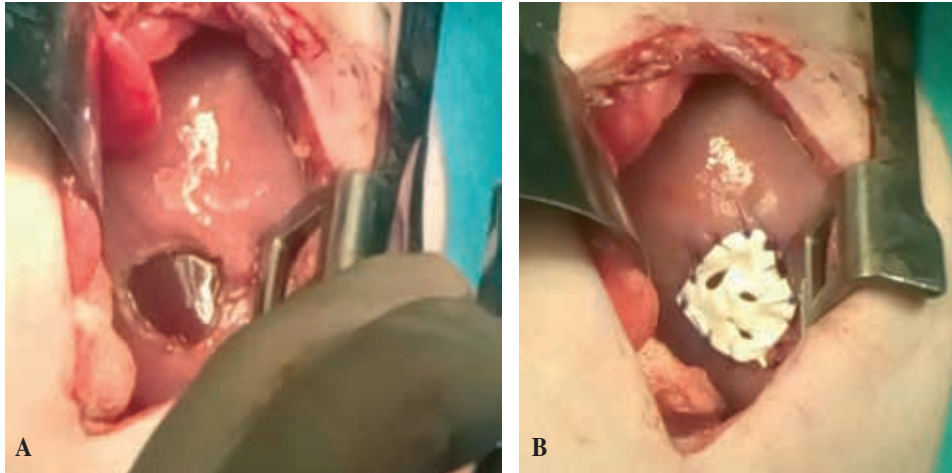


Figura 3. Visión por toracotomía del drenaje pleuroperitoneal colocado en el paciente D.

Otros autores⁽⁸⁻¹⁰⁾ han descrito resultados similares a los nuestros en pacientes adultos tras una linfografía con AE. Sin embargo, dada la poca experiencia existente con esta técnica en niños, la literatura al respecto es marcadamente escasa.

La discordancia de resultados entre los casos postquirúrgicos y el paciente con etiología vascular es concordante también con estudios previos⁽²⁾, donde parece apreciarse que los casos secundarios a trombosis tienen peor respuesta al tratamiento tanto médico como quirúrgico.

El AE no es un agente inocuo, se ha descrito que disminuye el flujo y la capacidad de difusión del capilar pulmonar, por lo que está contraindicado en pacientes con insuficiencia respiratoria, *shunt* derecha-izquierda o que hayan recibido radioterapia pulmonar⁽¹¹⁾. Este efecto embolizante en el capilar pulmonar podría ocurrir también en el capilar linfático, siendo este el mecanismo de sellado de la fuga linfática propuesto en otros trabajos. No obstante, el escaso número de pacientes en la literatura ha impedido profundizar en esta hipótesis.

La embolización del conducto torácico en pacientes pediátricos es una técnica compleja ya que a la variabilidad de la anatomía linfática⁽¹²⁾ se añade el pequeño calibre de los vasos que muchas veces imposibilita la canulación del conducto torácico como ocurrió en la mayoría de los pacientes de nuestro estudio. Además, no está exenta de complicaciones, dado el riesgo de perforación de víscera hueca o grandes vasos durante la canulación percutánea. La acción embolizante del AE administrado mediante infusión intranodal podría evitar estos inconvenientes, hacer la técnica aplicable a niños de menor edad y peso, así como, ofrecer un tratamiento eficaz en aquellos pacientes cuya situación clínica impediría un abordaje quirúrgico por toracotomía.

Dentro de las limitaciones de nuestro estudio, está su carácter retrospectivo, que nos ha impedido obtener otros datos de interés como la cantidad de AE suministrada, la duración de la prueba o la dosis de radiación administrada.

En el caso A, no se logró opacificar ninguna estructura linfática durante el estudio, pero tampoco vascular o visceral.

La reabsorción lenta desde el tejido subcutáneo al sistema linfático podría explicar los resultados obtenidos, aunque este hecho no se pudiese demostrar en las radiografías de control.

Dado que ninguno de los pacientes abandonó realmente el tratamiento médico, no podemos descartar que el efecto observado después de la prueba no fuese fruto del mismo. Sin embargo, en los pacientes A y C, la demostrada refractariedad al tratamiento previo durante un tiempo prolongado hacen esta hipótesis menos probable. Para poder determinar si el AE tiene realmente un efecto sellante de la fuga linfática sería necesario plantear un ensayo clínico aleatorizado.

La linfografía intranodal es una técnica que aporta información para un tratamiento más específico del niño con quilotórax adquirido. Además, podría facilitar el manejo de pacientes con ascitis quílosa o malformaciones linfáticas, al ofrecer información anatómica y funcional sobre estas entidades.

CONCLUSIÓN

El quilotórax pediátrico requiere un abordaje multidisciplinar. La linfografía intranodal es una técnica de estudio de la patología linfática que comienza a hacerse necesaria en el paciente pediátrico. Por mecanismos aún desconocidos, el aceite etiodizado podría ser un agente terapéutico en el quilotórax postquirúrgico infantil.

BIBLIOGRAFÍA

1. Puligandla PS, Laberge JM. Infections and diseases of the lung, pleura and mediastinus. En: Coran A, Caldamone A, Adzick N, et al, editors. *Pediatric Surgery*. 7th ed. Philadelphia: Elsevier Saunders; 2012. p. 855-80.
2. Nath DS, Savla J, Khemani RG, Nussbaum DP, Greene CL, Wells WJ. Thoracic duct ligation for persistent chylothorax after pediatric cardiothoracic surgery. *Ann Thorac Surg*. 2009; 88: 246-51.

3. Cope C. Diagnosis and treatment of postoperative chyle leakage via percutaneous transabdominal catheterization of the cisterna chyli: a preliminary study. *J Vasc Interv Radiol.* 1998; 9: 727-34.
4. Cope C, Kaiser LR. Management of unremitting chylothorax by percutaneous embolization and blockage of retroperitoneal lymphatic vessels in 42 patients. *J Vasc Interv Radiol.* 2002; 13: 1139-48.
5. Chen E, Itkin M. Thoracic duct embolization for chylous leaks. *Semin Intervent Radiol.* 2011; 28: 63-74.
6. Schild HH, Naehle CP, Wilhelm KE, Kuhl CK, Thomas D, Meyer C, et al. Lymphatic interventions for treatment of chylothorax. *Rof.* 2015; 187: 584-8.
7. Kim EY, Hwang HS, Lee HY, Cho JH, Kim HK, Lee KS, et al. Anatomic and functional evaluation of central lymphatics with noninvasive magnetic resonance lymphangiography. *Medicine (Baltimore).* 2016; 95: e3109.
8. Alejandro-Lafont E, Krompiec C, Rau WS, Krombach GA. Effectiveness of therapeutic lymphography on lymphatic leakage. *Acta Radiol.* 2011; 52: 305-11.
9. Kitahara H, Yoshitake A, Hachiya T, Inaba Y, Tamura K, Yashiro H, et al. Management of aortic replacement-induced chylothorax by lipiodol lymphography. *Ann Vasc Dis.* 2015; 8: 110-2.
10. Matsumoto T, Yamagami T, Kato T, Hirota T, Yoshimatsu R, Masunami T, et al. The effectiveness of lymphangiography as a treatment method for various chyle leakages. *Br J Radiol.* 2009; 82: 286-90.
11. Lipiodol®. Ficha técnica del medicamento: Jubilant HollisterStier General Partnership; 2014. Disponible en: https://www.accessdata.fda.gov/drugsatfda_docs/label/2014/009190s0241bl.pdf [Acceso abril 2018].
12. Hematti H, Mehran RJ. Anatomy of the thoracic duct. *Thorac Surg Clin.* 2011; 21: 229-38.