

anteriores^{2,3}, en nuestra paciente no había ninguna exposición avar previa conocida, lo que sugiere que el organismo se obtuvo de otra fuente no identificada. *B. hinzii* es habitualmente resistente o intermedia a ampicilina, cefuroxima, ceftriaxona, cefotaxima, ciprofloxacino y tobramicina, y sensible a imipenem, meropenem, gentamicina, amikacina y trimetoprim-sulfametoxazol, que coincide con la sensibilidad antimicrobiana de nuestro aislado, excepto en el trimetoprim-sulfametoxazol. La identificación molecular mediante MALDI-TOF-MS y la secuenciación del 16S, como se realizó en nuestro caso, ofrece un diagnóstico microbiológico correcto⁶. La utilización de técnicas rápidas que aumentan la fiabilidad y la rapidez en la identificación de este microorganismo puede conducir a aclarar su papel como colonizador y patógeno humano.

Bibliografía

1. Cookson BT, Vandamme P, Carlson LC, Larson AM, Sheffield VL, Kersters K, et al. Bacteremia caused by a novel *Bordetella* species, *B. hinzii*. *J Clin Microbiol*. 1994;32:966-9.
2. Funke G, Hess T, von Gravenitz A, Vandamme P. Characteristics of *Bordetella hinzii* strains isolated from a cystic fibrosis patient over a 3-year period. *J Clin Microbiol*. 1996;34:966-9.

3. Gadea I, Cuenca-Estrella M, Benito N, Blanco A, Fernández-Guerrero ML, Valero-Guillén PL, et al. *Bordetella hinzii*, a "new" opportunistic pathogen to think about. *J Infect*. 2000;40:298-9.
4. Fry NK, Duncan J, Edwards MT, Tilley RE, Chitnavis D, Harman R, et al. A UK clinical isolate of *Bordetella hinzii* from a patient with myelodysplastic syndrome. *J Med Microbiol*. 2007;56:1700-3.
5. Arvand M, Feldhues R, Mieth M, Graus T, Bañadme P. Chronic cholangitis caused by *Bordetella hinzii* in a liver transplant recipient. *J Clin Microbiol*. 2004;42:2335-7.
6. Degand N, Carbonnelle E, Dauphin B, Beretti JL, le Bourgeois M, Sermet-Gaudelus I, et al. Matrix-assisted laser desorption ionization-time of flight mass spectrometry for identification of non-fermenting gram-negative bacilli isolated from cystic fibrosis patients. *J Clin Microbiol*. 2008;46:3361-7.

M. Pilar Palacián Ruiz*, M. Alejandra Vasquez Martinez
y Ana Isabel Lopez Calleja

Servicio de Microbiología, Hospital Miguel Servet, Zaragoza, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: ppalacian@salud.aragon.es
(M.P. Palacián Ruiz).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.arbres.2013.02.001>

Secuestro pulmonar bilateral en el adulto: aportación de un caso y revisión de la literatura

Bilateral Pulmonary Sequestration in an Adult: Case Report and Review of the Literature

Sr. Director:

Presentamos el caso de un varón de 64 años, exfumador, con criterios clínicos de bronquitis crónica, con oxígeno domiciliario desde hace más de 10 años y SAHS en tratamiento con CPAP nocturna. Ingresó en 1990 por neumonía en el lóbulo inferior izquierdo (LII) secundaria a cuadro de cuasi ahogamiento en agua de mar. Durante el seguimiento persistía una condensación triangular en el LII con TAC y fibrobroncoscopia no diagnósticas. Se realizó punción transtorácica guiada por TAC con citología negativa para malignidad y estudio microbiológico negativo. Presentó varios ingresos en los últimos años por agudización de la EPOC. Se solicitó nueva TAC torácica en 2004 por condensación en LII, siendo diagnosticado de posible secuestro pulmonar (SP) intralobar izquierdo. El paciente rechazó realizar nuevos estudios. En 2009 ingresó por neumonía, presentando en la TAC torácica (fig. 1) una formación compleja de unos 6-7 cm, en situación medial de LII, nutrida de un voluminoso vaso originado en la aorta torácica inferior y con drenaje a venas pulmonares, correspondiendo a un SP intralobar con probable sobreinfección; en situación simétrica, contralateral, existía otro vaso anómalo con origen también en la aorta, correspondiente a otro SP intralobar en dicha región derecha. Tras mejoría con tratamiento es dado de alta para seguimiento en consulta, pero no acude a las revisiones. La mayoría de los SP intralobares son unilaterales, siendo muy raros los bilaterales¹. Para Kohler el SP fue descrito por primera vez por Rokitsanski y Rektorzik en 1861 y no fue hasta 1946 cuando lo da a conocer Pryce² como entidad clínica. En 1972 Felson et al.³ comunicaron un caso de SP bilateral confirmado por anatomía patológica. En 1977 Karp et al.¹ describen otro caso en una niña de 13 años que presentó una masa en LII descubierta tras una radiografía de tórax. Se le realizó TAC y arteriografía pulmonar, evidenciándose un SP intralobar izquierdo, ya sospechado, y un SP derecho no observado anteriormente. Existen algunos casos publicados desde entonces coincidiendo en edad pediátrica o

adolescentes. Es en 2009 cuando Yamamura et al.⁴ explican el procedimiento quirúrgico que se realizó a un paciente de 44 años que presentaba un SP bilateral intra y extralobar. Wei y Li⁵ analizaron 2.625 casos de SP en 2011, entre los cuales tan solo 3 eran bilaterales y 2 de ellos intralobares. El caso que presentamos cumple la doble excepcionalidad de tratarse de un paciente con un SP bilateral intralobar y ser de edad avanzada. Ha presentado neumonías de repetición de aspecto cambiante en LII, en el que las pruebas diagnósticas no llegaron a ser concluyentes. En la TAC previa al ingreso actual ya se describía la posibilidad de SP. La existencia de condensaciones de repetición, especialmente si se producen en LII, obliga a contemplar el diagnóstico diferencial de diversas patologías como el SP, neumonías de larga evolución, enfermedad obstructiva crónica o tumores pulmonares⁶. Tradicionalmente el diagnóstico de SP requería de realización de angiografía pulmonar para poner de manifiesto vascularización anómala. La existencia de nuevas técnicas como la angioTAC de última generación permite reconstrucciones vasculares de alta resolución que pueden obviar la arteriografía, así como poner de manifiesto malformaciones



Figura 1. AngioTAC. Se aprecian las arterias nutricias de ambos secuestros subsidiarias de la aorta torácica.

congénitas evitando técnicas más invasivas. En cuanto al tratamiento, propondríamos la actuación sobre el SP izquierdo, por ser el sintomático, mediante cirugía o VATS, siendo esta última técnica menos invasiva.

Bibliografía

1. Karp W. Bilateral sequestration of the lung. *Am J Roentgenol.* 1977;128:513-5.
2. Pryce DM. Lower accessory pulmonary artery with intralobar sequestration of lung: Report of seven cases. *J Pathol Bacteriol.* 1946;58:457-67.
3. Felson B. The many faces of pulmonary sequestration. *Semin Roentgenol.* 1972;7:3-16.
4. Yamamura Y, Hida Y, Kaga K, Kawada M, Niizeki H, Ichinokawa M, et al. Simultaneous resection of bilateral intralobar and extralobar pulmonary sequestration with video-assisted thoracoscopic surgery. *Ann Thorac Surg.* 2009;87:1939-41.
5. Wei Y, Li F. Pulmonary sequestration: A retrospective analysis of 2625 cases in China. *Eur J Cardiothorac Surg.* 2011;40:e39-42.
6. Palmowski M, Schreimer K, Hansmann J, Grenacher L. Bronchopulmonary sequestration: A differential diagnosis in young adults for recurrent pneumonia. *Lancet.* 2007;369:1318.

Montserrat Fontalba Navas^{a,*}, Justo Sánchez Gil^b
y José Calvo Bonachera^c

^a Medicina de Familia, Complejo Hospitalario Torrecárdenas, Almería, España

^b Unidad de Gestión Clínica de Medicina Interna, Hospital Universitario Reina Sofía, Córdoba, España

^c Unidad de Gestión Clínica de Neumología, Complejo Hospitalario Torrecárdenas, Almería, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: mnfont@hotmail.com
(M. Fontalba Navas).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.arbres.2013.01.008>

Bronquiolitis obliterante en paciente tratado con D-penicilamina

Obliterating Bronchiolitis in a Patient Treated With D-Penicillamine

Sr. Director:

Durante el tratamiento crónico con penicilamina se han descrito diferentes efectos secundarios, sobre todo a nivel dermatológico, como dermatitis exfoliativa, rash y alopecia¹. Otras reacciones adversas descritas son vasculitis y tiroiditis. A nivel respiratorio se han descrito, aunque con menor frecuencia, casos de asma, fibrosis pulmonar, neumonitis intersticial y bronquiolitis obliterante.

Presentamos el caso de un paciente varón de 47 años, nunca fumador, con antecedentes patológicos de hipertensión arterial en tratamiento médico, dislipidemia en tratamiento con estatinas, enfermedad de Graves-Basedow tratada con yodo radiactivo 8 años antes (actualmente en tratamiento sustitutivo) y enfermedad de Wilson diagnosticada 20 años antes, al inicio tratada con cinc y desde hace 2 años con penicilamina, con antecedente laboral de comercial sin contacto con tóxicos o aves. El paciente consultó por disnea de esfuerzo. Se realizó un primer estudio respiratorio funcional que mostró una alteración ventilatoria obstructiva grave, iniciándose tratamiento con corticosteroides inhalados. Se solicitó TC de tórax y pruebas funcionales respiratorias completas, que mostraron una alteración obstructiva grave no reversible con atrapamiento aéreo y DLCO disminuida. El TC mostró discretas bronquiectasias y bronquiolectasias difusas (fig. 1). Se realizó test del sudor para cribado de fibrosis quística, que resultó negativo, y estudio de inmunoglobulinas, que fue normal. En consulta de control se observa insuficiencia respiratoria y se decide ingreso para estudio. A la exploración física destacaba una saturación de oxígeno (respirando aire ambiente) por pulsioximetría del 88% sin signos de esfuerzo respiratorio con auscultación pulmonar normal, con el resto de la exploración física anodina. Análítica general sin alteraciones, TC de tórax sin cambios respecto al previo. Bajo sospecha de bronquiolitis secundaria a fármacos, se realiza biopsia de la llingula por toracotomía anterior y, tras un postoperatorio sin incidencias, es dado de alta con oxigenoterapia domiciliaria. El diagnóstico anatomopatológico final resultó bronquiolitis folicular asociada a bronquiolitis obliterante tipo constrictivo.

Se decidió retirar el tratamiento con penicilamina e iniciar tratamiento con broncodilatadores, corticoterapia (metilprednisolona

40 mg/día), y se derivó al centro de referencia para valoración de trasplante pulmonar. En mayo del 2012 se realizó con éxito un trasplante bipulmonar.

La bronquiolitis obliterante es una afectación inespecífica de pequeña vía aérea (<2 mm de diámetro). Presenta una clínica poco representativa (tos y disnea progresiva). La exploración física es poco llamativa y se pueden observar signos de hiperinsuflación, espiración alargada y ruidos respiratorios inespecíficos como roncus, crepitantes o sibilantes. La radiografía simple de tórax puede ser normal o bien mostrar signos de atrapamiento aéreo. Se obtendrá más información mediante la TC de alta resolución en inspiración y espiración. Se han descrito distintos signos radiológicos en la TC que orientarían en el diagnóstico: signos directos (engrosamiento de la pared bronquiolar con el típico patrón de «tree-in-bud», bronquiolectasias y nódulos centrolobulillares) e indirectos (atelectasias subsegmentarias y signos de atrapamiento aéreo) en los cortes en espiración. Se puede clasificar según la etiología o según la anatomía patológica^{1,2}. Etiológicamente han de diferenciarse las de causa idiopática de las secundarias. Estas últimas acostumbra a ser agudas y se conoce el agente causante, principalmente fármacos o tóxicos presentando buena respuesta al tratamiento broncodilatador. Según la histopatología se ha descrito: bronquiolitis constrictiva, proliferativa, folicular, fibrosis intersticial central y panbronquiolitis difusa. El diagnóstico de bronquiolitis se hará a partir de la clínica y de pruebas complementarias compatibles, aunque el de certeza se obtendrá mediante biopsia pulmonar. El tratamiento se basará en el uso de corticoterapia, broncodilatadores, tratamiento antibiótico con macrólidos y, en el caso de rápida evolución, trasplante pulmonar.

En nuestro caso se trataba de una bronquiolitis obliterante de tipo constrictivo que es un patrón histológico poco frecuente y se caracteriza por alteración de la pared de los bronquiolos respiratorios por presencia de fenómenos de infamación y fibrosis, provocando la disminución u obliteración de la luz bronquial por fenómenos cicatriciales. Suele ser secundaria a fármacos, enfermedad sistémica o infección.

Para concluir, se ha presentado este caso clínico como muestra de un efecto secundario poco frecuente pero descrito de un tratamiento de uso habitual en diversas patologías^{3,4} además de la poca especificidad de la clínica y estudios complementarios, la gravedad e irreversibilidad del cuadro y la necesidad de un diagnóstico de certeza mediante una prueba invasiva y que en ocasiones puede requerir trasplante pulmonar como tratamiento^{5,6}.