

Avances en Ciencia, Salud y Medicina

Órgano Oficial de Difusión de los Servicios de Salud de Oaxaca

Julio - Septiembre 2021

Vol. 8 Núm. 3

Malformación adenomatoide quística, asociada a broncodisplasia pulmonar. Reporte de un caso en paciente prematuro.

López-Cruz Gerardo,¹ Pacheco-Barete Carlos Francisco,² López-Días Alejandra Vianey,³ Juárez-Mesinas Denia,⁴ López-Días Paulina Sofía,⁵ Luna-Rangel Judith,⁴ Rodríguez-García Jesús,¹ Reyes-Gómez Ulises,⁶ Martínez-Hernández Yracema,⁷ Rosas-Paz Norma Elvira,⁷ Bravo-Torres Manuel.^{1,8}

¹Servicio de Pediatría del Hospital General Dr. Aurelio Valdivieso de Oaxaca.

²Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales (UCIN) del Hospital General "Dr. Aurelio Valdivieso".

³Universidad Autónoma Benito Juárez de Oaxaca.

⁴Servicio de Radiología del Hospital General Dr. Aurelio Valdivieso de Oaxaca.

⁵Bachillerato en Ciencias de la Salud, Instituto San Felipe Oaxaca.

⁶Academia Mexicana de Pediatría.

⁷Facultad de Enfermería de la Universidad Autónoma Benito Juárez de Oaxaca.

⁸Terapia Intensiva Pediátrica del Hospital de la Niñez Oaxaqueña.

Correspondencia:

M. en C. Gerardo López Cruz.
Servicio de Pediatría del Hospital Civil
Dr. Aurelio Valdivieso.
Calle Porfirio Díaz 407, Colonia Reforma, CP 68000.
Oaxaca de Juárez Oax.

Tel: (951) 5151422

Correo-e: investsurgery@hotmail.com

Detalles del Artículo:

Recibido: 28-junio-2021

Aceptado:30-agosto-2021

Cómo citar este artículo:

López-Cruz G, Pacheco-Barete CF, López-Días AV, Juárez-Mesinas D, López-Días PS, Luna-Rangel J, Rodríguez-García J, Reyes-Gómez U, Martínez-Hernández Y, Rosas-Paz NE. Malformación adenomatoide quística, asociada a broncodisplasia pulmonar. Reporte de un caso en paciente prematuro. *Avan C Salud Med* 2021; 8 (3):87-92

Cystic adenomatoid malformation associated with pulmonary bronchodysplasia. Report of a case in a premature patient.

Abstract

Cystic adenomatoid malformation is an abnormal proliferation of lung tissues secondary to an error in the maturation of bronchiolar structures, it occurs 1 in 10,000-35,000 births and manifests with secondary respiratory distress. We present the case of a male preterm, 28 weeks gestation, Apgar 3/7, Weight: 950 grams, with respiratory distress secondary to grade III hyaline membrane disease and early neonatal sepsis, maintained on mechanical ventilation for 2 months. At 32 days of age, type I cystic adenomatoid malformation is diagnosed. Surgical treatment is the best treatment option. But in asymptomatic patients it is debatable. Surgical treatment was not accepted, after 2 months of mechanical ventilation, development of pulmonary bronchodysplasia. Surgical treatment in asymptomatic patients is controversial. Long-term surveillance is important, due to the possibility of developing infectious and pulmonary oncological complications.

Keywords: Cystic Adenomatoid Malformation of Lung Congenital, Congenital Cystic Adenomatoid Malformation, Pulmonary Adenomatosis.

Resumen

La malformación adenomatoide quística es una proliferación anormal de tejidos pulmonares secundaria a un error en la maduración de estructuras bronquiolares, se presentan 1 en 10,000-35,000 nacimientos y se manifiesta con dificultad respiratoria secundaria. Se presenta el caso de un pretérmino masculino, 28 semanas de gestación, Apgar 3/7, Peso: 950 gramos, con dificultad respiratoria secundaria a enfermedad de membrana hialina grado

III y sepsis neonatal temprana, se mantiene en ventilación mecánica por 2 meses. A los 32 días de vida, se diagnostica malformación adenomatoide quística tipo I. El tratamiento quirúrgico es la mejor opción de tratamiento. Pero en pacientes asintomáticos es debatible. No fue aceptado el tratamiento quirúrgico, después de 2 meses de ventilación mecánica, desarrollo broncodisplasia pulmonar. Es controversial el tratamiento quirúrgico en pacientes asintomáticos. Es importante la vigilancia a largo plazo, por la posibilidad de desarrollar complicaciones infecciosas y oncológicas pulmonares.

Palabras Clave: Enfermedad Adenomatoidea Quística Pulmonar, Adenoma Quístico Bronquial Fetal, Hamartoma Quístico Pulmonar, Malformación Adenomatoide Quística.

Introducción

La malformación adenomatoide quística (MAQ) se define como una proliferación anormal de los tejidos pulmonares secundaria a un error en la maduración de estructuras bronquiolares.¹ Las lesiones quísticas congénitas del pulmón se presentan 1 por cada 10,000 a 35,000 nacimientos. Se presentan como un espectro de anomalías, la mayoría de estas lesiones quísticas comprenden malformación adenomatoide quística congénita, secuestro pulmonar, enfisema lobar congénito y quiste broncogénico.²

La malformación adenomatoide quística congénita del pulmón, típicamente se manifiesta con dificultad respiratoria secundaria a la progresiva expansión del pulmón afectado.³ La malformación congénita de la vía aérea pulmonar se origina como resultado de un desarrollo embrionario pulmonar anormal, producido en la fase pseudoglandular, generando hiperplasia compensatoria de la vía aérea distal y reemplazo del parénquima normal por quistes de distintos tamaños y ubicación.⁴ Otra hipótesis, pero muy controvertida, es que esta malformación puede ser el resultado de una obstrucción de los bronquios pulmonares durante el desarrollo fetal, con vías respiratorias dilatadas y formación de pseudoquiste.⁵ Existen otras hipótesis que implican la asociación de obstrucción de las vías respiratorias y fenómenos moleculares locales.⁶

Las expresiones de marcadores de desarrollo pulmonar temprano dentro de la lesión, como el factor de transcripción tiroideo-1 (TTF-1) o Hoxb5, evocaban una anomalía que se producía durante la fase pseudoglandular de la 6 a 16 semanas de gestación⁷, o en la etapa canicular a las 17-26 semanas de gestación.⁸

En cuanto a la localización, se refiere que hasta en 51% se ubica en el hemitórax izquierdo, 14% de las ocasiones se encuentra de manera bilateral, siendo cuatro veces más probable que éste afecte sólo un lóbulo pulmonar, es rara la afectación de todo el pulmón.^{9,10} La clasificación de la malfor-

mación adenomatoide quística fue realizada por Stocker en 1977 y se basaba en el tamaño de los quistes.¹¹

La denominación inicial de malformación adenomatoide quística, se abandonó en el año 2002, por iniciativa de Stocker, y en la actualidad se emplea el término: malformación congénita de la vía aérea pulmonar (MCVAP); debido a que en muchas ocasiones no se encontraban ni quistes ni malformaciones adenomatosas.

La clasificación también fue cambiada a 5 tipos¹²:

Tipo 0: se origina a partir de la tráquea o tejido bronquial y tiene una baja incidencia (1-3%). Los quistes son de hasta 0.5 cm de diámetro y afectan a todos los lóbulos pulmonares. En general son incompatibles con la vida y se asocian con anomalías cardíacas graves.

Tipo I: quiste único grande o múltiples mayores a 2 cm de diámetro. Es el más frecuente (50-70%) y con el mejor pronóstico. La malformación ejerce un efecto de masa que comprime el pulmón sano adyacente y puede generar dificultad respiratoria en el recién nacido.

Tipo II: múltiples quistes de menos de 2 cm que afectan a 1 lóbulo pulmonar y tiene origen bronquiolar. Es el segundo tipo más frecuente (20-40%).

Tipo III: masa sólida de origen bronquiolar/alveolar que puede desplazar y comprimir el pulmón contralateral y las estructuras mediastínicas, provocando hipertensión pulmonar e hidrops fetal. Equivale aproximadamente al 10% de las MCVAP.

Tipo IV: tiene un origen acinar distal con grandes quistes periféricos de hasta 7 cm de diámetro, y corresponde a un 10 a 15% de las MCVAP.

Las malformaciones asociadas, sobre todo en el tipo II, se observan hasta en un 42%, tales como las genitourinarias, como la agenesia renal y el síndrome de Potter, en un 21% asociado a anomalías cardiovasculares (persistencia del conducto arterioso, dextrocardia, etcétera), malformacio-

nes de la caja torácica en un 16% (pectum excavatum) y otras malformaciones en 5%, dentro de las cuales se incluyen estenosis pilórica, hipoplasia pulmonar, hernia diafragmática, hidrocefalia, atresia yeyunal, síndrome de Pierre-Robin (micrognatia, glosoptosis, acompañada de hendidura retroalveolar del paladar duro y blando o paladar ojival), o la presencia de hemivértabras.^{13,14} El blastoma pleuropulmonar, se ha propuesto como la evolución natural de la enfermedad tipo 1, cuando no se realiza tratamiento quirúrgico y se asocia más frecuentemente al tipo IV.^{15,16}

El motivo de este artículo es presentar un caso de malformación adenomatoidea quística asociada a broncodisplasia.

Caso clínico

Antecedentes heredofamiliares. Madre de 27 años y padre de 28 años, ambos sin antecedentes de importancia.

Antecedentes prenatales. Gesta 1, aborto a las 16 semanas. Gesta 2 con parto pre término a las 22 semanas de gestación que culminó con la muerte del producto. G3, inicia control prenatal en el primer trimestre, 6 consultas en total, se realiza 5 ultrasonidos aparentemente sin alteraciones; consume hierro y ácido fólico desde el primer trimestre; infección urinaria y cervicovaginitis al 5º mes de gestación tratada con amoxicilina oral y óvulos. Se realiza cerclaje cervical a las 14 semanas de gestación por incompetencia ístmico-cervical. Dos días previos al parto presenta flujo transvaginal abundante, amarillento y desgarrado de cerclaje. Por ultrasonido se observa producto único vivo en presentación pélvica, frecuencia cardíaca fetal 145 por minuto, placenta fúndica, grado I, ILA 14, peso estimado 1,400 g, cérvix con membrana en reloj de arena, ingresa con los diagnósticos de primer período de trabajo de parto, embarazo de 28.6 semanas de gestación por FUM, multigesta.

Antecedentes posnatales. Se obtiene por vía vaginal producto único vivo masculino, pretérmino de 28 semanas de gestación, líquido amniótico claro, sin llanto y sin respirar, frecuencia cardíaca menor de 100 latidos por minuto. Apgar 3/7, Peso: 950 gramos, talla 36 cm, perímetro cefálico 24 cm, perímetro torácico 22 cm, perímetro abdominal 19 cm, pie 6 cm, profilaxis con vitamina A, vitamina K y cloranfenicol oftálmico. Ameritó medidas de reanimación con bolsa y cánula, mejorando frecuencia cardíaca y coloración de tegumentos; se aplica surfactante pulmonar a razón

de 80 mg/kg/dosis endotraqueal, gasometría en acidemia metabólica, normoxemia, normocapnia. Se mantuvo dos meses en ventilación mecánica por presentar dificultad respiratoria secundaria a enfermedad de membrana hialina grado III modificada por aplicación de surfactante pulmonar y sepsis neonatal temprana secundaria a cervicovaginitis materna. A los 20 días de vida se diagnosticó enfisema intersticial de pulmón derecho.

A los 32 días de vida se encontraba con campos pulmonares con adecuada entrada y salida de aire por ambos hemitórax; auscultación de estertores pulmonares crepitantes gruesos en lóbulo inferior derecho. La radiografía y tomografía de tórax mostraron malformación adenomatoide quística (figuras 1,2 y 3). Se mantuvo con ventilación mecánica desde el nacimiento y hasta el día 07 de agosto del 2021, fecha en la que se le retira a ventilación mecánica de manera electiva. Hasta el 22 de agosto permaneció con puntas nasales a un litro por minuto sin mezclador de oxígeno neonatal (Blender) por no contarse con este recurso.

Los diagnósticos finales fueron:

- 1.- Prematurez.
- 2.- Hiperbilirrubinemia multifactorial remitida.
- 3.- Dificultad respiratoria secundaria a enfermedad de membrana hialina grado III, remitida.
- 4.- Sepsis neonatal temprana remitida.
- 5.- Conjuntivitis bacteriana bilateral remitida.
- 6.- Enterocolitis necrotizante estadio 1ª remitida.
- 7.- Sepsis neonatal tardía asociada a los cuidados de la salud, remitida.
- 8.- Retinopatía del prematuro estadio 1 en zona 1.
- 9.- Persistencia del conducto arterioso.
- 10.- Hemorragia intraventricular grado III.
- 11.- Crisis convulsivas neonatales en control.
- 12.- Malformación congénita de la vía aérea y pulmonar tipo I.

Discusión

El paciente motivo de esta publicación, a los 20 días de vida fue diagnosticado con enfisema intersticial pulmonar. A los 32 días de vida se interconsulta al servicio de cirugía pediátrica y se establece el diagnóstico de enfermedad adenomatoide pulmonar quística de patrón mixto.

De acuerdo los datos tomográficos el enfisema intersticial pulmonar en el 82% de las tomografías pulmonares muestran líneas centrales gruesas asociadas a grandes puntos rodeados de imáge-

Figura 1. Radiografía de tórax que muestra lóbulo inferior derecho con aumento de la radiolucidez, con burbujas aéreas de más de 1 cm (circulo de color negro), en relación a malformación adenomatoide quística.

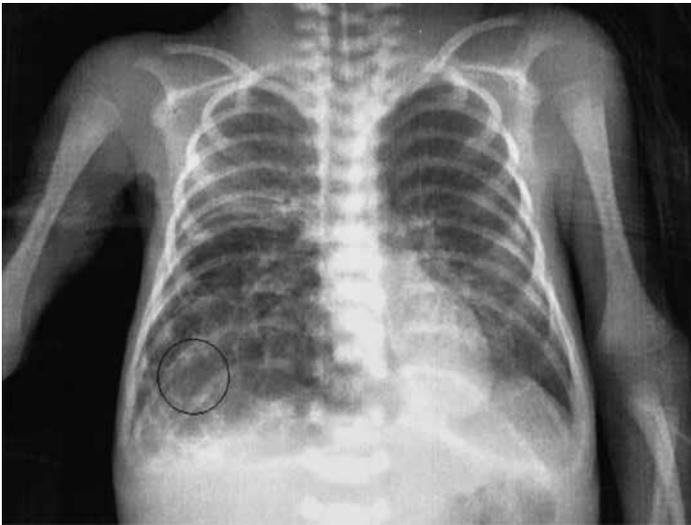


Figura 2. TAC de tórax que muestra imágenes quísticas aéreas en el lóbulo inferior derecho, > de 1 cm, compatible con malformación adenomatoide quística.



nes radiolúcidas, que corresponden a quistes. Imágenes no presentes en la tomografía del paciente.¹⁷ La radiografía de tórax mostró el lóbulo inferior derecho con aumento de la radiolucidez, con burbujas aéreas de más de 1 cm, en relación a malformación adenomatoide quística. Cuando las radiografías simples de tórax no son concluyentes, existe la necesidad de utilizar imágenes tomografías.¹⁸ En este caso fue necesario realizar

Figura 3. Radiografía de tórax que muestra displasia broncopulmonar con predominio de moderada radiolucidez pulmonar bilateral, en el lóbulo inferior derecho la hiperclaridad disminuyó y las burbujas aéreas fueron sustituidas por posible componente fibroso, compatible con broncodisplasia pulmonar que sustituyó a la malformación adenomatoide quística.



estudio tomográfico encontrando imágenes quísticas aéreas en el lóbulo inferior derecho, > de 1 cm, compatibles con malformación adenomatoide quística tipo I. Por lo que se concluye que el paciente es portador de malformación adenomatoide quística tipo I.

La patología congénita pulmonar se puede detectar ecográficamente desde las 12 semanas,¹⁹ sin embargo, la edad gestacional media del diagnóstico por ultrasonido es alrededor de las 20 semanas,²⁰ en términos generales el diagnóstico prenatal puede realizarse mediante ecografía en el segundo trimestre de embarazo.²¹ En el presente caso no fue posible realizar el diagnóstico prenatal en los 5 ultrasonidos prenatales realizados durante el embarazo. Pero aun con diagnóstico prenatal, era aconsejable confirmarlo con resonancia magnética fetal que identifica con más precisión las estructuras anatómicas afectadas y evalúa la coexistencia de otras anomalías congénitas asociadas.²²

Las lesiones que permiten el diagnóstico prenatal presentan un incremento de tamaño con un pico máximo a las 28 semanas, con estabilización e incluso regresión posterior, estimándose un 15% de casos de desaparición de la malformación intraútero durante el tercer trimestre.²³ El paciente fue evaluado dentro del margen de edad para poder realizar el diagnóstico prenatal con recursos humanos capacitados en el diagnóstico de imagen en esta patolo-

gía. Todos los pacientes con malformaciones pulmonares quísticas detectados en etapa prenatal, requieren una evaluación posnatal completa, incluida una tomografía computarizada de tórax. Después del parto, la apariencia clínica de las malformaciones pulmonares quísticas puede variar desde dificultad respiratoria inmediata al nacer hasta un hallazgo accidental en una radiografía de tórax a cualquier edad. En el presente caso la dificultad respiratoria que presentó el paciente fue ligado inmediatamente a la falta de surfactante otorgando el tratamiento correspondiente y el diagnóstico se estableció como un hallazgo accidental en una radiografía de tórax a los 32 días de vida.

Las malformaciones pulmonares quísticas son lesiones que pueden desaparecer en las imágenes del último trimestre, en algunas ocasiones con una radiografía de tórax posnatal normal, por esta razón se recomienda un seguimiento por imágenes para asegurarse de que no hay anomalías sutiles residuales.²⁴

El caso aquí presentado asociado a broncodisplasia pulmonar muestra imágenes radiográficas donde parece desaparecer la malformación pulmonar quística. En la figura 3, la radiografía de tórax muestra displasia broncopulmonar. Donde predomina moderada radiolucidez pulmonar bilateral y componente fibroso; en el lóbulo inferior derecho la hiperclaridad disminuyó y las burbujas aéreas fueron sustituidas por componente fibroso, compatible con broncodisplasia pulmonar que sustituyó a la malformación adenomatoide quística.

La broncodisplasia se observa especialmente en recién nacidos prematuros menores de 1,200 gramos, quienes tienen una enfermedad pulmonar leve o moderada al nacer. La mayoría de estos niños requiere de ventilación mecánica prolongada, debido a inmadurez del centro respiratorio y limitación en la mecánica respiratoria, tal como sucedió en nuestro paciente.^{25,26}

El manejo quirúrgico es la mejor opción de tratamiento en la malformación adenomatoide quística, respecto del tratamiento conservador.²⁷ En el presente caso el tratamiento quirúrgico no fue aceptado por los padres.

Cuando una lesión es asintomática, existe un mayor debate sobre el beneficio de la resección quirúrgica frente a la observación continua.²⁸ El paciente presentaba broncodisplasia pulmonar después de 2 meses de ventilación mecánica.

El paciente se encuentra estable a 64 días de vida, con múltiples comorbilidades (prematurez, hiperbilirrubinemia multifactorial remitida, difi-

cultad respiratoria secundaria a enfermedad de membrana hialina grado III remitida, sepsis neonatal temprana remitida, conjuntivitis bacteriana bilateral remitida, enterocolitis necrotizante estadio 1^a remitida, sepsis neonatal tardía asociada a los cuidados de la salud remitida, retinopatía del prematuro estadio 1 en zona 1, persistencia del conducto arterioso, hemorragia intraventricular grado III, crisis convulsivas neonatales en control, malformación congénita de la vía aérea pulmonar tipo D), por lo que es debatible el tratamiento quirúrgico en este momento. El plan es la vigilancia clínica, radiológica y en base a su evolución tomar una decisión multidisciplinaria que beneficie al paciente.

La evolución natural puede dar lugar a infecciones o neoplasias, cuya prevalencia exacta aún es difícil de evaluar.²⁹ En virtud de que la malformación adenomatoide pulmonar quística es una afección que predispone a las neoplasias pulmonares, como el blastoma pleuropulmonar, rabdomiosarcoma y la transformación maligna en carcinoma broncoalveolar,³⁰ es indispensable la vigilancia a estrecha del paciente.

La cirugía fetal abierta de acuerdo a un estudio preliminar en la enfermedad adenomatoide quística se perfila como una opción de tratamiento.³¹ La fetoscopia en el futuro puede ser una alternativa de tratamiento en enfermedad adenomatoide quística pulmonar.³²

La enfermedad adenomatoide pulmonar quística, se asocia con malformaciones cardiovasculares, urogenitales, toraco-pulmonares como fistula traqueo-esofágica y agenesia del cuerpo calloso.³³ Nuestro paciente presentó persistencia del conducto arterioso.

Aunque las lesiones pulmonares quísticas pueden disminuir de tamaño de forma espontánea la resolución posnatal completa es rara.^{34,35} El seguimiento por imágenes en enfermedad adenomatoide pulmonar quística es importante para determinar cuándo y cómo abordar a estos pacientes.^{36,37}

De acuerdo con la literatura publicada, se confirma que la enfermedad adenomatoide pulmonar quística es una patología pulmonar con resultado benigno y una baja mortalidad perinatal, que no suele asociarse con defectos de crecimiento morfoestructural.³⁸

Un metaanálisis del grupo del *King's College* reportó supervivencia del 97.2%, con resolución prenatal en el 29.6% y cirugía postnatal en el 62.7% de un total de 486 fetos con enfermedad adenomatoide pulmonar quística y sin hidrops.³⁹

Conclusiones

1.-El diagnóstico prenatal es fundamental para establecer un adecuado seguimiento en los pacientes con malformaciones pulmonares congénitas.

2.-Es obligado realizar una tomografía de tórax para confirmar el diagnóstico.

3.- Es controversial el tratamiento quirúrgico en pacientes asintomáticos.

4.-Es fundamental la vigilancia a largo plazo en los pacientes asintomáticos.

Referencias bibliográficas

- 1.- Reynoso AE, Nájera HAB, León BJJ, Martínez BI. Malformación adenomatoide quística en un recién nacido. *Rev Med Hosp Gen Mex* 2008; 71 (1): 36-41.
- 2.- Durell J, Lakhoo K. Congenital cystic lesions of the lung. *Early Human Dev.* 2014; 90 (12): 935-9.
- 3.- Rosado-de-Christenson ML, Stocker JT. Congenital cystic adenomatoid malformation. *Radiographics.* 1991; 11(5):865-86.
- 4.- Thorpe-Beeston JG, Nicolaides KH. Cystic adenomatoid malformation of the lung: Prenatal diagnosis and outcome. *Prenat Diagn.* 1994; 14: 677-88.
- 5.- Hadchouel-Duvergé A, Lezmi G, de Blic J, Delacourt C. Congenital lung malformations: Natural history and pathophysiological mechanisms. *Rev Mal Respir.* 2012; 4: 601-11.
- 6.- Langston C. New concepts in the pathology of congenital lung malformations. *Semin Pediatr Surg.* 2003; 1: 17-37.
- 7.- Jesudason EC, Smith NP, Connell MG, et al. Developing rat lung has a sided pacemaker region for morphogenesis-related airway peristalsis. *Am J Respir Cell Mol Biol.* 2005; 2: 118-27.
- 8.- Morotti R, Gutierrez MC, Askin F, et al. Expression of thyroid transcription factor-1 in congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Pediatr Dev Pathol.* 2000; 3: 455-61.
- 9.- Mondragón J, Jiménez R, Alvarado R, Gallego J, Galicia A. Malformación adenomatoidea quística pulmonar. Informe de un caso de presentación tardía. *Acta Pediatr Mex* 2004; 25: 333-336.
- 10.-Ruperez S, Ruíz M, Aristegui N, García N, Hurrioz A, Alonso L. Malformación adenomatoidea quística. Diagnóstico diferido de una anomalía congénita. *An Pediatr* 2003; 59: 396-399.
- 11.-Stocker JT, Madewell JE, Drake RM. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. Classification and morphologic spectrum. *Hum Pathol.* 1977; 8: 155-171.
- 12.-Stocker JT. Congenital pulmonary airway malformation: a new name and an expanded classification of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Histopathology.* 2002; 41 (suppl 2): 424-58.
- 13.-Giubergia V, Barrenechea M, Siminovich M, Pena HG, Murtagh P. Congenital cystic adenomatoid malformation: clinical features, pathological concepts and management in 172 cases. *J Pediatr (Rio J)* 2012; 88: 143-8.
- 14.-Sánchez JR. Malformación adenomatoidea quística congénita del pulmón. *Rev Arch Med Camagüey* 2005; 9: 51-58.
- 15.-Priest JR, Williams GM, Hill DA, et al. Pulmonary cysts in early childhood and the risk of malignancy. *Pediatr Pulmonol.* 2009; 44: 14-30.
- 16.-Fitzgerald DA. Congenital cyst adenomatoid malformations: ¿resect some and observe all? *Paediatr Respir Rev.* 2007; 8 (1): 67-76. 17.-Donnelly LF, Lucaya J, Ozelame V. CT Findings and Temporal Course of Persistent Pulmonary Interstitial Emphysema in Neonates: A multiinstitutional Study. *AJR:* 2003; 180: 1129-33.
- 18.-Disu ES, Kehinde OA, Anga AL, Ubuane PO, Itiola A, Akionola IJ, Falase B. Congenital pulmonary airway malformation: A case report of a rare cause of neonatal respiratory distress and review of the literature. *Niger J Clin Pract.* 2019; 22 (11): 1621-1625.
- 19.-De Santis M, Masini L, Noia G, Cavaliere AF, Oliva N, Caruso A. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung: antenatal ultrasound findings and fetal-neonatal outcome. Fifteen years of experience. *Fetal Diagn Ther* 2000; 15: 246-50.
- 20.-Sauvat F, Michel JL, Benachi A, Emond S, Revillon Y. Management of asymptomatic neonatal cystic adenomatoid malformations. *J Pediatr Surg* 2003; 38: 548-52.
- 21.-Chow PC, Lee SL, Tang MH, et al: Management and outcome of antenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Hong Kong Med J* 2007; 13: 31-9.
- 22.-Hubbard AM, Adzick NS, Crombleholme TM, et al: Congenital chest lesions: diagnosis and characterization with prenatal MR imaging. *Radiology* 1999; 212: 43-8.
- 23.-Mann S, Wilson RD, Bebbington MW, Adzick NS, Johnson MP: Antenatal diagnosis and management of congenital cystic adenomatoid malformation. *Semin Fetal Neonatal Med* 2007; 12: 477-81.
- 24.-Liu YP, Chen CP, Shih SL, Chen YF, Yang FS, Chen SC. Fetal cystic lung lesions: evaluation with magnetic resonance imaging. *Pediatr Pulmonol.* 2010; 45: 592-600.
- 25.-Davies JM, Rosenfeld WN. Chronic lung disease. In: *Avery's Neonatology. Pathophysiology and management of the newborn* 6th ed. Lippincott Williams & Wilkins 2005: 578-99.
- 26.-Jobe AH, Bancalari E. Bronchopulmonary dysplasia. *NICHD/ NHLB/ORD Workshop Summary.* *Am J Respir Crit Care Med* 2001; 163: 1723-29.
- 27.-Shamas AG, Bohara K. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung (CCAM), a retrospective clinical audit and literature review in a tertiary centre in Scotland over period of 14 years. *J Obstet Gynaecol.* 2017; 37 (1): 19-24.
- 28.-Hall NJ, Stanton MP. Long-term of congenital lung malformations. *Semin Pediatr Surg.* 2017; 26(5): 311-316.
- 29.-Leblanc C, Baron M, Desselas E, Phan MH, Rybak A, Thouvenin G, Lauby C, Irtan S. Congenital pulmonary airway malformations: state-of-the-art review for pediatrician's use. *Eur J Pediatr.* 2017; 176 (2): 1559-1571.
- 30.-Eber E. Antenatal diagnosis of congenital thoracic malformations: early surgery, late surgery, or no surgery? *Semin Respir Crit Care Med.* 2007; 28: 355-366.
- 31.-Fan D, Shuzhen W, Wang R, Huang Y, Fu Y, Ai W, Zeng M, Guo X, Liu Z. Successfully treated congenital cystic adenomatoid malformation by open fetal surgery: A care-compliant case report of a 5-year follow-up and review of the literature. *Medicine(Baltimore).* 2017, 96 (2): e5865.
- 32.-Deprest JA, Lerut TE, Vandenbergh K. Operative fetoscopy: new perspective in fetal therapy? *Prenat Diagn.* 1997; 17 (13): 1247-60.
- 33.-Pizzi M, Fassan M, Ludwig K, Cassina M, Gervasi MT, Salmaso R. Congenital pulmonary airway malformation (CPAM) [congenital cystic adenomatoid malformation] associated with tracheoesophageal fistula and agenesis of the corpus callosum. *Fetal Pediatr Pathol.* 2012; 31 (3):169-75.
- 34.-Butterworth SA, Blair GK. Postnatal spontaneous resolution of congenital cystic adenomatoid malformations *J Pediatr Surg.* 2005; 40: 832-834.
- 35.-Calvert JK, Boyd PA, Chamberlain PC, Said S, Lakho K. Outcome of antenatally suspected congenital cystic adenomatoid malformation of the lung: 10 years' experience 1991-2001. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed.* 2006; 91: 26-28.
- 36.-Recio RM, Martínez de Vega V, Cano AR, Carrascoso AJ, Martínez TP, Pérez PJMR imaging of thoracic abnormalities in the fetus. *Radiographics.* 2012; 32: E305-E321.
- 37.-Lacy DE, Shaw NJ, Pilling DW, Walkinshaw S. Outcome of congenital lung abnormalities detected antenatally. *Acta Paediatr.* 1999; 88: 454-458.
- 38.-Miller JA, Corteville JE, Langer JC. Congenital cystic adenomatoid malformation in the fetus: natural history and predictors of outcome. *J Pediatr Surg* 1996; 31: 805-8.
- 39.-Cavoretto P, Molina F, Poggi S, Davenport M, Nicolaides KH. Prenatal diagnosis and outcome of echogenic fetal lung lesions. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2008; 32: 769-83.