

Fetal Bronkopulmoner Malformasyonlar: Prenatal Tanı ve Perinatal Sonuçlar

Fetal Bronchopulmonary Malformations: Prenatal Diagnosis and Perinatal Outcomes

Başak Kaya ©
Deniz Kanber Açar ©
Salim Sezer ©
Ahmet Tayyar ©
İbrahim Polat ©

Öz

Amaç: Bu çalışmada prenatal dönemde konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve bronkopulmoner sekestrasyon tanısı alan olguların klinik özelliklerinin, prognozu etkileyen faktörlerin ve perinatal sonuçlarının değerlendirilmesi amaçlandı.

Yöntem: Ocak 2013-Aralık 2016 tarihleri arasında hastanemiz perinatoloji ünitesinde konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve bronkopulmoner sekestrasyon tanısı alan 59 olgunun kayıtları incelendi. Torakal kitlenin özellikleri ve doğal seyri ile olguların yönetimleri ve perinatal sonuçları incelendi.

Bulgular: Otuz yedi olgu (%71.2) konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve 15 olgu (%28.8) bronkopulmoner sekestrasyon tanısı aldı. Olguların %17.3'ünde eşlik eden yapısal anomali saptanırken, eşlik eden yapısal anomali olan olguların 4'ünde (%7.7) kromozom anomali mevcuttu. Olguların %75'inde canlı doğum gerçekleşti. Yenidoğan döneminde 23 olguda (%59) bronkopulmoner malformasyon varlığı radyolojik olarak gösterildi ve bu olguların 18'i (%78.3) yaşamın ilk bir yılında opere edildi.

Sonuç: Eşlik eden anomali ve hidrops yokluğunda fetal bronkopulmoner malformasyon olgularının prenatal dönemde oldukça iyi seyrettiği ve özellikle spontan regresyon izlenen olguların postnatal dönemde operasyon gereksinimi olmadan sorunsuz yaşamlarını sürdürdüklerini saptadık. Fetal bronkopulmoner malformasyonlar ve diğer torakal anomalilerin prenatal tanı sıklığının artırılabilmesi amacıyla temel fetal anatomik tarama sırasında toraks transvers kesitlerden görüntülenmeli ve klinik şüphe varlığında çoklu sonografik planlar kullanılarak ayırıcı tanı yapılmalıdır.

Anahtar kelimeler: fetal bronkopulmoner malformasyonlar, konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu, bronkopulmoner sekestrasyon, fetal torakal ekojenik lezyon

ABSTRACT

Objective: To evaluate the clinical features, prognostic factors and perinatal outcomes of fetuses with the diagnosis of congenital pulmonary airway malformation and bronchopulmonary sequestration.

Method: The medical records of 59 fetuses with the diagnosis of congenital pulmonary airway malformation and bronchopulmonary sequestration were retrospectively analyzed. The characteristics and natural history of the thoracic mass, and the perinatal outcomes of cases were evaluated.

Results: While 37 cases (71.2%) were diagnosed as congenital pulmonary airway malformation, 15 cases (28.8%) were diagnosed as bronchopulmonary sequestration. Associated structural anomalies were detected in 17.3 percent of cases and chromosomal anomalies were present in 7.7 percent of cases with associated anomalies. Live birth occurred in 75 percent of cases. The presence of bronchopulmonary malformation was shown in 59 percent of cases in postnatal period, and 78.3 percent of these cases were operated in the first year of life.

Conclusion: We observed that fetuses with the diagnosis of bronchopulmonary malformation had a good prognosis in the absence of associated anomaly and fetal hydrops. It is also observed that the cases with spontaneous regression of the thoracic mass did not need an operation. Thoracic transverse sections should be evaluated during basic fetal anatomic screening in order to increase the frequency of prenatal diagnosis of fetal thoracic anomalies.

Keywords: fetal bronchopulmonary malformations, congenital pulmonary airway malformation, bronchopulmonary sequestration, echogenic fetal lung lesions

Received: 4 September 2019

Accepted: 20 January 2020

Publication date: 31 January 2020

Cite as: Kaya B, Kanber Açar D, Sezer S, Tayyar A, Polat İ. Fetal bronkopulmoner malformasyonlar: Prenatal tanı ve perinatal sonuçlar. İKSSTD 2020;12(1):34-8.

Başak Kaya
İstanbul Medipol Üniversitesi Tıp Fak.
Perinatoloji Ünitesi
İstanbul - Türkiye
✉ kayabasak84@gmail.com
ORCID: 0000-0002-2257-2355

D. Açar 0000-0001-8072-2262
SBÜ. Bakırköy Dr. Sadi Konuk EAH
Perinatoloji Ünitesi
İstanbul - Türkiye

S. Sezer 0000-0003-1287-4306
SBÜ. Kanuni Sultan Süleyman EAH
Perinatoloji Ünitesi
İstanbul - Türkiye

A. Tayyar 0000-0003-1257-8742
İstanbul Medipol Üniversitesi Tıp Fak.
Perinatoloji Ünitesi
İstanbul - Türkiye

İ. Polat 0000-0001-9434-3976
SBÜ. Kanuni Sultan Süleyman EAH
Perinatoloji Ünitesi
İstanbul - Türkiye

GİRİŞ

Prenatal sonografide hiperekojenik pulmoner lezyonlar olarak görüntülenen konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu (eski adı ile konjenital kistik adenomatoid malformasyon) ve pulmoner sekestrasyon (PS) fetal bronkopulmoner malformasyonların yaklaşık % 85'ini oluştururlar ^(1,2). Prenatal ultrasonografi deneyiminin artması ve ultrasonografi teknolojisindeki gelişmeler ile konjenital pulmoner kitlelerin prenatal tanı sıklığı son yıllarda artış göstermektedir.

Konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu, terminal respiratuvar bronşiolerin anormal proliferasyonu ve buna bağlı olarak normal alveol yapısının gelişmemesi ile karakterize vasküler desteğini pulmoner vasküler yataktan alan lezyonlardır. Pulmoner sekestrasyon ise sistemik dolaşımdan vasküler destek alan, trakeobronşial sistem ile ilişkisiz, fonksiyone olmayan pulmoner doku lezyonudur ⁽³⁻⁶⁾. Prenatal dönemde tanımlanan bazı pulmoner kitlelerde konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve pulmoner sekestrasyonun her ikisine ait klinik ve patolojik özelliklerin gözlenmesi bu iki patolojinin benzer embriyolojik temele sahip olduğunu düşündürmektedir ⁽⁷⁾.

Bu çalışmada hastanemiz perinatoloji ünitesinde prenatal dönemde konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve pulmoner sekestrasyon tanısı alan olguların kayıtları incelenerek bu olguların klinik özelliklerinin, prognozu etkileyen faktörlerin ve perinatal sonuçlarının değerlendirilmesi amaçlandı.

GEREÇ ve YÖNTEM

Ocak 2013-Aralık 2016 tarihleri arasında hastanemiz perinatoloji ünitesinde konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve bronkopulmoner sekestrasyon tanısı alan 59 olgunun kayıtları incelendi. Takiplere devam etmeyen ve perinatal sonuçlarına ulaşılamayan 7 olgu dışlandıktan sonra toplam 52 olgu çalışmaya dahil edildi. Çalışmaya yerel etik kuruldan onay alınmıştır.

Fetal ultrasonografik incelemelerin tümü maternal-fetal tıp uzmanları tarafından Voluson 730 ve Voluson E6 (GE Medical Systems, Milwaukee, WI, USA) ultrasonografi cihazları ile gerçekleştirildi. Sonografik inceleme sırasında torakal kitlenin yerleşimi, boyutları, besleyici arter varlığı, mediastinal kayma, poli-

hidroamniyos ve hidrops varlığı raporlandı. Konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu 5 mm'den büyük bir veya daha fazla kist varlığında makrokistik tip olarak adlandırılırken, homojen biçimde hiperekojen görüntülenen belirgin kist yapısı içermeyen lezyonlar mikrokistik/solid tip olarak adlandırıldı ⁽⁸⁾. Tüm fetuslara eşlik eden yapısal anomali varlığının araştırılması amacıyla detaylı anatomik değerlendirme yapıldı. Tanı sonrası aile maternal-fetal tıp uzmanı, çocuk cerrahisi uzmanı ve tıbbi genetik uzmanı tarafından bilgilendirildi. Hastanemiz kayıtlarından olguların doğum haftaları, doğum kiloları, 1. ve 5. dk. APGAR skorları, cinsiyetleri ve yenidoğan döneminde yapılan görüntüleme tetkiklerinin sonuçlarına ulaşıldı.

Verilerin istatistiksel analizinde SPSS paket programı versiyon 24 (Statistical Package for the Social Sciences, Chicago, IL, ABD) kullanıldı. Tanımlayıcı istatistikler ortalama±standart sapma, medyan (minimum-maksimum) ve sayı (yüzde) olarak verildi.

BULGULAR

Çalışmaya dahil edilen 52 olgunun ortalama maternal yaşı 29.2 ve tanıdaki ortalama gebelik haftası 24.3 idi. Otuz yedi olgu (% 71.2) konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve 15 olgu (% 28.8) bronkopulmoner sekestrasyon tanısı aldı. Olguların % 57.7'sinde lezyon sol hemitoraksta, % 42.3'de sağ hemitoraksta yerleşmişti. Konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu olgularının % 56.8'i mikrokistik/solid, % 43.2'si makrokistik görünümdeydi. Çalışmaya dahil edilen 52 olgunun 9'unda (% 17.3) eşlik eden yapısal anomali saptandı. Eşlik eden yapısal anomali olan olguların 4'ünde (%7.7) kromozom anomali saptandı. Olguların 11'inde (%21.2) fetal hidrops mevcuttu. Kromozom anomali saptanan 4 olgu ve hidropsu olan 7 olgu olmak üzere toplam 11 olguda (%21.2) gebeliğin terminasyonu gerçekleştirildi. Fetal hidrops saptanan 2 olguda (% 3.8) intrauterin dönemde fetal kayıp izlendi. Olguların demografik ve klinik özellikleri Tablo 1'de gösterilmiştir.

Toplam 52 olgunun 39'unda (% 75) canlı doğum gerçekleşti. Canlı doğan olguların ortalama doğum haftası 38.2 hafta, ortalama doğum kilosu 3118 gr, 1. ve 5. dk. APGAR medyan değerleri sırasıyla 7 ve 9 idi. Üç olguda (% 7.7) yenidoğan döneminde kayıp izlendi (Tablo 2). Bu olguların ikisinde eşlik eden yapısal anomali ve birinde fetal hidrops mevcuttu. Yenidoğan döneminde 23 olguda (%59) bronkopulmoner mal-

Tablo 1. Olguların demografik ve klinik özellikleri.

	Konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu (n=37)	Pulmoner sekestrasyon (n=15)
Maternal yaş (yıl)	29.2±5.3	29.2±4.6
Gravida	2 (1-8)	2 (1-5)
Parite	1 (0-5)	1 (0-3)
Yaşayan	1 (0-5)	1 (0-3)
Tanı anındaki gebelik haftası (hafta)	24.1±3.1	24.8±2.5
Eşlik eden yapısal anomali varlığı	8 (% 21.6)	1 (% 6.7)
Kromozom anomalisi varlığı	3 (% 8.1)	1 (% 6.7)
Fetal hidrops varlığı	10 (% 27)	1 (% 6.7)
Gebelik terminasyonu	11 (% 29.7)	0
İntrauterin fetal kayıp	1 (% 2.7)	1 (% 6.7)
Canlı doğum	25 (% 67.6)	14 (% 93.3)

Veriler ortalama±SD, medyan (min-max) veya sayı (yüzde) olarak verilmiştir.

Tablo 2. Canlı doğan olguların özellikleri.

Doğum haftası (hafta)	38.2±1.7
Doğum kilosu (gram)	3118±586
APGAR 1. Dakika	7 (4-9)
APGAR 5. Dakika	9 (6-10)
Cinsiyet (erkek)	23 (% 59)
Yenidoğan döneminde ölüm	3 (% 7.7)

Veriler ortalama ± SD, medyan (min-max) veya sayı (yüzde) olarak verilmiştir.

formasyon varlığı radyolojik olarak gösterildi ve bu olguların 18'i (% 78.3) yaşamın ilk bir yılında opere edildi. Opere olan olguların tamamında patolojik olarak bronkopulmoner malformasyon varlığı doğrulandı. Görüntüleme tetkiklerinde bronkopulmoner malformasyon saptanmayan 16 olgunun (% 41) cerrahi gereksinimi olmadı.

TARTIŞMA

Konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve pulmoner sekestrasyon prenatal dönemde en sık saptanan hiperekojenik pulmoner kitlelerdir⁽⁹⁾. Prenatal dönemde bronkopulmoner malformasyon tanısı alan olguların klinik özelliklerini ve prognozlarını incelediğimiz bu çalışmada ek anomali ve hidrops yokluğunda olguların prenatal prognozlarının oldukça iyi seyrettiğini ve özellikle takiplerde spontan regresyon izlenen olguların postnatal dönemde operasyon gereksinimi olmadan yaşamlarını sorunsuz sürdürdüklerini saptadık.

Konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu prenatal sonografide solid veya kistik ekojenik kitle olarak görüntülenir. Bu kitlenin arteriyel desteğinin sistemik dolaşımdan kaynaklanmadığının gösterilmesi ile tanı desteklenir⁽¹⁰⁾. Pulmoner sekestrasyon tanısı

fetal toraksta solid, ekojenik kitle ve kitleye ait sistemik dolaşım kaynaklı besleyici arterin görülmesi ile koyulur⁽¹¹⁾. Besleyici arterin görüntülenemediği durumlarda mikrokistik/solid konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ile pulmoner sekestrasyonun prenatal dönemde benzer ultrasonografik görünüme sahip olması ayırıcı tanıda zorluk yaratmaktadır⁽¹²⁾. Ayrıca prenatal dönemde ultrasonografi aracılığı ile tanımlanan pulmoner kitlelerin bir bölümünde postnatal rezeksiyon sonrası konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve sekestrasyona ait patolojik özellikler birlikte bulunabilir⁽⁸⁾. Bu nedenle özellikle lezyon tipinin prognoz üzerine olan etkisinin kısıtlı olması nedeni ile prenatal dönemde bu iki lezyonun ayırıcı tanısından daha önemlisi eşlik eden yapısal anomali ve hidrops varlığının araştırılmasıdır.

Büyük torasik kitleler mediastinal kaymaya yol açarak sistemik venler ve kalp üzerine olan bası etkisi ile fetal hidropsa yol açabilir⁽¹³⁾. Güncel literatürde bronkopulmoner malformasyonların prognozunun lezyonun tipinden çok lezyonun boyutu ve büyüme paterni ile ilgili olduğu belirtilmekte⁽⁶⁾, fetal ve neonatal kayıplar fetal hidrops, pulmoner hipoplazi, prematürite ve eşlik eden anomalilerin varlığına bağlanmaktadır^(2,8,9).

Çalışmamızda fetal hidrops saptanan 11 olgunun 7'sinde aile istemi ile gebelik terminasyonu uygulanırken fetal hidropsu olan 2 olguda ise intrauterin dönemde fetal kayıp gerçekleşti. Hidropik fetusların yalnızca 2 tanesi canlı doğdu ve bu olgulardan 22. gebelik haftasında tanı alan ve tanı anında hidropsu olan ilk olgu erken yenidoğan döneminde pulmoner hipoplazi nedeni ile kaybedildi. Tanı anında hidropsu olmayan ancak 31. gebelik haftasında hidrops geliştiği

gözlenen ve intrauterin fetal tedavi seçeneğini kabul etmeyen ikinci olgu ise postnatal cerrahi girişim ve 96 günlük yoğun bakım süreci sonrasında aralıklı oksijen desteği ile taburcu edildi. Yenidoğan dönemi sonrası yaşamın görüldüğü bu tek olguda plevral efüzyon ve hidropsun gebeliğin geç döneminde gelişmesi nedeni ile ağır pulmoner hipoplaziye neden olmadığı düşünülmüş, plevral efüzyon ve fetal hidropsun geliştiği gebelik haftasının da prognoz üzerinde etkili olabileceği sonucuna varılmıştır.

Çalışmamızda perinatal prognozu etkileyen faktörleri incelediğimizde perinatal mortalitenin yalnızca eşlik eden yapısal anomalisi ve fetal hidropsu olan olgularda gerçekleştiği; polihidroamnios ve/veya mediastinal kayma varlığının eşlik eden yapısal anomali ve fetal hidrops yokluğunda perinatal prognozu olumsuz yönde etkilemediği saptandı. Güncel literatür ve çalışmamızın sonuçları ışığında fetal bronkopulmoner malformasyon tanılı olgularda eşlik eden ağır yapısal anomali, kromozom anomalisi ve ağır fetal hidrops yokluğunda tek başına kitlenin boyutlarına, mediastinal kayma ve polihidroamnios varlığına göre gebeliğin terminasyonu kararı verilmemesi gerektiği ve bunun yerine olguların seri sonografik takibe alınması gerektiği sonucuna varılmaktadır.

Diyafram hernisi, bronkojenik ve enterik kistler, mediastinal kistik teratom, konjenital lobar amfizem ve bronşial atrezi konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu ve pulmoner sekestrasyon ayırıcı tanısında akılda tutulması gereken diğer torakal anomalilerdir (6,14,15). Ayırıcı tanının doğru yapılması bu klinik durumların prognozlarının birbirinden farklı olması nedeni ile önemlidir.

Antenatal dönemde kendiliğinden gerileyen konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu olgularının % 60 kadarında postnatal dönemde görüntüleme yöntemleri ile lezyonun tespit edilemediği bildirilmiştir (9,16-18). Benzer şekilde çalışmamızda canlı doğan olguların % 41'de postnatal dönemde görüntüleme yöntemleri ile lezyon tespit edilemediği ve bu olgularda operasyon gereksinimi olmadığı gözlenmiştir. Aksine postnatal dönemde görüntüleme yöntemleri ile lezyonun tespit edildiği olguların % 78.3'ü opere olmuştur. Bu bulgular bronkopulmoner lezyonların kendiliğinden gerileyebileceği hipotezini desteklemektedir ancak literatürde bu duruma karşıt bir görüş olarak prenatal veya postnatal takiplerde lezyonun görüntülenemediği olguların aslında bronkopulmo-

ner malformasyon olguları olmadığı, bu durumun bronşiyal ağacın geçici tıkanıklığından kaynaklanıyor olabileceği ileri sürülmektedir (9).

Çalışmamızda literatür ile uyumlu olarak fetal ekojenik kitle izlenen olguların büyük kısmını konjenital pulmoner hava yolu malformasyonu olgularının oluşturduğu, torakal kitlenin sıklıkla sol akciğerde yerleşik olduğu ve daha sık erkek fetuslarda saptandığı gözlemlendi (19,20). Kromozom anomalisi yalnızca eşlik eden yapısal anomalisi olan olgularda saptanırken, izole bronkopulmoner malformasyon olgularında kromozom anomalisi saptanmadı. Bu nedenle olgular eşlik eden yapısal anomali varlığı açısından değerlendirilmeli ve ek anomali varlığında karyotip analizi seçeneği sunulmalıdır.

Çalışmanın retrospektif dizaynı, termine edilen ve intrauterin dönemde kaybedilen olguların tanısının otopsi ile doğrulanamayışı çalışmamızın önemli kısıtlılıklarıdır.

Sonuç olarak fetal bronkopulmoner malformasyonlar ve diğer torakal anomalilerin prenatal tanı sıklığının artırılabilmesi amacıyla toraksın transvers kesitlerden görüntülenmesi temel fetal anatomik tarama programlarında yer almalı ve klinik şüphe varlığında çoklu sonografik planlar kullanılarak ayırıcı tanı yapılmalıdır. Bu fetusların yönetiminde öncelikle lezyonun boyutları, yerleşim yeri, eşlik eden yapısal anomali ve hidrops varlığı belirlenmelidir. Ek anomali ve fetal hidrops yokluğunda olgular kitlenin büyüme, efüzyon ve hidrops gelişimi açısından seri sonografik takibe alınmalıdır. Fetal hidrops varlığında aile intrauterin fetal tedavi seçenekleri hakkında bilgilendirilmeli, fetal tedaviyi kabul etmeyen olgulara gebeliğin terminasyonu seçeneği ile ilgili bilgi verilmelidir. Fetal hidrops varlığında anne ayna sendromu bulguları açısından değerlendirilmelidir. Olguların doğumları gerekli müdahale ve bakımın yapılabileceği tersiyer merkezlerde planlanmalı ve intrauterin dönemde regresyon görülen lezyonlar dahi postnatal dönemde radyolojik olarak değerlendirilmelidir.

Etik Kurul Onayı: İstanbul Medipol Üniversitesi Girişimsel Olmayan Klinik Araştırmalar Etik Kurulu tarafından onay alınmıştır (03/09/2019, sayı 10840098-604.01.01.E.45865).

Çıkar Çatışması: Çıkar çatışması yoktur.

Finansal Destek: Finansal destek yoktur.

Hasta Onamı: Her hastadan bilgilendirilmiş onay alınmıştır.

Ethics Committee Approval: Approved by Istanbul Medipol University Non-Interventional Clinical Research Ethics Committee (03/09/2019, number 10840098-604.01.01.E.45865).

Conflict of Interest: There is no conflict of interest.

Funding: There is no financial support.

Informed Consent: Informed consent was obtained from each patient.

KAYNAKLAR

- Avni FE, Masseur A, Cassart M. Tumours of the fetal body: a review. *Pediatr Radiol.* 2009;39(11):1147-57. <https://doi.org/10.1007/s00247-009-1160-6>
- Tsao K, Albanese CT, Harrison MR. Prenatal therapy for thoracic and mediastinal lesions. *World J Surg.* 2003;27(1):77-83. <https://doi.org/10.1007/s00268-002-6740-7>
- Paladini D, Volpe P. Thoracic anomalies. In: Paladini D, Volpe P, editors. *Ultrasound of congenital fetal anomalies*. 2nd edition. NW: CRC Press Taylor and Francis Group; 2014. p. 233-266 <https://doi.org/10.1201/b16779-7>
- Bianchi DW, Crombleholme TM, D'Alton ME, Malone FD. *Fetology Diagnosis and Management of The Fetal Patient*. 2nd edition. USA: The McGraw-Hill Companies; 2010.
- Kilby MD, Oepkes D, Johnson A. *Fetal Therapy: Scientific Basis and Critical Appraisal of Clinical Benefits*. 1st edition. NY: Cambridge University Press; 2013 <https://doi.org/10.1017/CBO9780511997778>
- Adzick NS, Harrison MR, Crombleholme TM, Flake AW, Howell LJ. Fetal lung lesions: management and outcome. *Am J Obstet Gynecol.* 1998;179(4):884-9. [https://doi.org/10.1016/S0002-9378\(98\)70183-8](https://doi.org/10.1016/S0002-9378(98)70183-8)
- Cass DL, Crombleholme TM, Howell LJ, Stafford PW, Ruchelli ED, Adzick NS. Cystic lung lesions with systemic arterial blood supply: a hybrid of congenital cystic adenomatoid malformation and bronchopulmonary sequestration. *J Pediatr Surg.* 1997;32(7):986-90. [https://doi.org/10.1016/S0022-3468\(97\)90383-3](https://doi.org/10.1016/S0022-3468(97)90383-3)
- Laberge JM, Flageole H, Pugash D, et al. Outcome of the prenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid malformation: a Canadian experience. *Fetal Diagn Ther* 2001;16(3):178-86. <https://doi.org/10.1159/000053905>
- Cavoretto P, Molina F, Poggi S, Davenport M, Nicolaides KH. Prenatal diagnosis and outcome of echogenic fetal lung lesions. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2008;32(6):769-83. <https://doi.org/10.1002/uog.6218>
- Deacon CS, Smart PJ, Rimmer S. The antenatal diagnosis of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Br J Radiol.* 1990;63:968-70. <https://doi.org/10.1259/0007-1285-63-756-968>
- Eisenberg P, Cohen HL, Coren C. Color Doppler in pulmonary sequestration diagnosis. *J Ultrasound Med.* 1992;12:179-83. <https://doi.org/10.7863/jum.1992.11.4.175>
- Hernanz-Schulman M, Stein SM, Neblett WW, et al. Pulmonary sequestration: diagnosis with color Doppler sonography and a new theory associated hydrothorax. *Radiology* 1991; 180(3):817-21. <https://doi.org/10.1148/radiology.180.3.1871300>
- Rice HE, Estes JM, Hedrick MH, Bealer JF, Harrison MR, Adzick NS. Congenital cystic adenomatoid malformation: a sheep model of fetal hydrops. *J Pediatr Surg.* 1994;29(5):692-96. [https://doi.org/10.1016/0022-3468\(94\)90743-9](https://doi.org/10.1016/0022-3468(94)90743-9)
- Morin L, Crombleholme TM, D'Alton ME. Prenatal diagnosis and management of fetal thoracic lesions. *Semin Perinatol.* 1994;18(3):228-53.
- Romero R, Chervenak FA, Kotzen J, Berkowitz RL, Hobbins JC. Antenatal sonographic findings of extralobar pulmonary sequestration. *J Ultrasound Med.* 1982;1(3):131-2. <https://doi.org/10.7863/jum.1982.1.3.131>
- Calvert JK, Boyd PA, Chamberlain PC, Syed S, Lakhoo 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(1):F26-8. <https://doi.org/10.1136/adc.2004.068866>
- Achiron R, Strauss S, Seidman DS, Lipitz S, Maschiach S, Goldman B. Fetal lung hyperechogenicity: prenatal ultrasonographic diagnosis, natural history and neonatal outcome. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 1995;6(1):40-2. <https://doi.org/10.1046/j.1469-0705.1995.06010040.x>
- Sapin E, Lejeune VV, Barbet JP, et al. Congenital adenomatoid disease of the lung: prenatal diagnosis and perinatal management. *Pediatr Surg Int.* 1997;12(2/3):126-9 <https://doi.org/10.1007/BF01349978>
- Piccione W Jr, Burt ME. Pulmonary sequestration in the neonate. *Chest* 1990;97(1):244-6. <https://doi.org/10.1378/chest.97.1.244>
- Duncombe GJ, Dickinson JE, Kikiros CS. Prenatal diagnosis and management of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Am J Obstet Gynecol.* 2002;187(4):950-4. <https://doi.org/10.1067/mob.2002.127460>