

Aneurisma arterial pulmonar y osteoartropatía hipertrófica en paciente con cardiopatía congénita cianótica

Pulmonary artery aneurysm and hypertrophic osteoarthropathy in a patient with cyanotic congenital heart disease

Sr. Director:

La patogenia de los aneurismas arteriales y de la osteoartropatía hipertrófica (OAH) está relacionada con diversos factores de crecimiento endotelial que intervienen en su aparición.

Presentamos el caso de un paciente varón de 34 años, con antecedente de cardiopatía congénita cianótica tipo atresia

pulmonar con fístulas paliativas sistemicopulmonares, que ingresa por un cuadro de hemoptisis autolimitada. El paciente presentaba acropaquias en manos y pies, y edema, eritema, parestesias y dolor sordo, profundo y continuo en tercios distales de ambas regiones tibiales, tobillos y pies.

En la radiografía de tórax (fig. 1A) se evidenció una masa pulmonar derecha que en la broncoscopia producía compresión extrínseca y pulsátil de la pared bronquial derecha, con coágulo adherido en su interior, y la resonancia magnética (fig. 1B) y la angiografía confirmaron que se trataba de un aneurisma arterial pulmonar derecho de 8 × 6 cm. Por su lado, la radiología ósea mostró un marcado engrosamiento del periostio en el tercio medio y distal de ambas tibias y en la zona distal de ambos peronés (fig. 2), compatible con OAH.

Los aneurismas arteriales pulmonares suelen estar asociados a infecciones (aneurismas micóticos), traumatismos, anomalías vasculares como la necrosis quística de la media, la enfermedad de Behcet, el síndrome de Marfan, la enfermedad de Takayasu o la hipertensión arterial pulmonar¹. Por su parte, la OAH es un síndrome clinicoradiológico que se caracteriza por acropaquias o dedos en palillos de tambor, periostitis (que afecta particularmente a los tercios distales de los huesos largos de las extremidades), cambios pseudoartríticos y simétricos en articulaciones (habitualmente en tobillos, rodillas, muñecas y codos) y alteraciones neurovasculares que producen dolor sordo, eritema crónico, hinchazón y parestesias (principalmente en manos y pies) en pacientes con cáncer de pulmón, cardiopatías congénitas cianóticas u otras enfermedades sistémicas con afectación pulmonar.

Determinados factores angiogénicos, particularmente el factor de crecimiento vascular endotelial (VEGF), participan en el remodelado vascular y la formación de aneurismas.

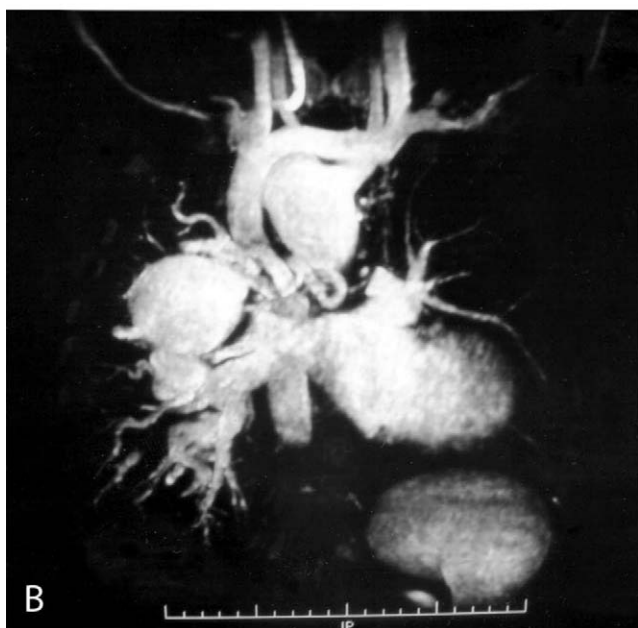


Figura 1 A) Radiografía de tórax con masa parahiliar derecha y arco aórtico derecho (flecha). B) Resonancia magnética con aneurisma arterial pulmonar derecho de 8 × 6 cm y arco aórtico derecho.



Figura 2 Periostitis distal de tibia y peroné. La flecha señala periostitis en el peroné (línea fina y radiolúcida separada del córtex).

Sandalcioglu et al² observaron que los pacientes con aneurismas intracraneales no complicados tenían valores superiores de VEGF que los pacientes sanos. De forma similar, Savino et al³ demostraron que los pacientes con valores mayores de VEGF tenían una mayor incidencia de ectasia coronaria difusa.

El VEGF, igualmente, parece tener un papel importante en el desarrollo de la OAH al inducir en el subperiostio del hueso engrosamiento periosteal, asociándose a prácticamente todas las enfermedades con OHA valores elevados de VEGF⁴.

En nuestro paciente no llegaron a determinarse los valores plasmáticos de VEGF. Sin embargo, el hecho de que cumpliera con los criterios de OAH, que se aliviase el dolor de miembros inferiores con octreótido, un inhibidor de la producción de VEGF⁵, y presentase un aneurisma arterial pulmonar gigante, una entidad poco frecuente en pacientes con cardiopatía congénita, podría indicar la implicación del VEGF, conjuntamente con otros factores, en ambas patologías.

Bibliografía

1. Castañer E, Gallardo X, Rimola J, Pallardó Y, Mata JM, Perendreu J, et al. Congenital and acquired pulmonary artery anomalies in the adult: radiologic overview. *Radiographics*. 2006;26:349–71.
2. Sandalcioglu IE, Wende D, Eggert A, Regel JP, Stolke D, Wiedemayer H. VEGF plasma levels in non-ruptured intracranial aneurysms. *Neurosurg Rev*. 2006;29:26–9.
3. Savino M, Parisi Q, Biondi-Zoccai GG, Pristipino C, Cianflone D, Crea F. New insights into molecular mechanisms of diffuse coronary ectasia: a possible role for VEGF. *Int J Cardiol*. 2006;106:307–12.
4. Olán F, Portela M, Navarro C, Gaxiola M, Silveira LH, Ruiz V, et al. Circulating vascular endothelial growth factor concentrations in a case of pulmonary hypertrophic osteoarthropathy. Correlation with disease activity. *J Rheumatol*. 2004;31:614–6.
5. Ángel-Moreno Maroto A, Martínez-Quintana E, Suárez-Castellano L, Pérez-Arellano JL. Painful hypertrophic osteoarthropathy successfully treated with octreotide. The pathogenetic role of vascular endothelial growth factor (VEGF). *Rheumatology (Oxford)*. 2005;44:1326–7.

E. Martínez-Quintana^{a,*} y F. Rodríguez-González^b

^a*Servicio de Cardiología, Complejo Hospitalario Universitario Insular-Materno Infantil, Las Palmas de Gran Canaria, España*

^b*Servicio de Medicina Intensiva, Complejo Hospitalario Universitario Insular-Materno Infantil, Las Palmas de Gran Canaria, España*

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: efrenmartinezquintana@yahoo.es (E. Martínez-Quintana).