

## Fístula aortoesofágica secundaria a rotura de quiste hidatídico

### Aortoesophageal fistula after rupture of hydatid cyst of the aorta

J. Miguel Martín-Pedrosa - Lourdes del Río - José A. González-Fajardo - M.º José Ramos\*\* - José M.º Matilla\* - Félix Heras\* - Guillermo Ramos\* - Vicente Gutiérrez - Santiago Carrera - Carlos Vaquero

**Servicio de Angiología y Cirugía Vascular**  
**(Jefe de Servicio: Dr. Carlos Vaquero)**  
**Hospital Universitario Valladolid**  
**Valladolid (España)**

**Key words:** Aortoesophageal fistula, hydatid cyst.

#### Introducción

Aunque la fístula aortoesofágica es una conocida complicación de infecciones intratorácicas, en este artículo presentamos un caso inusual de quiste hidatídico de aorta torácica descendente fistulizado a esófago en su porción mediastínica. Dado que la afectación hidatídica de la pared aórtica es una manifestación excepcional, incluso en países endémicos, el diagnóstico es sumamente complejo, siendo este el primer caso con esta complicación. Las características clínicas, el manejo quirúrgico y una revisión de la literatura son discutidos.

#### RESUMEN

Presentamos un caso inusual de quiste hidatídico de aorta torácica descendente fistulizado a esófago en su porción mediastínica. Dado que la afectación hidatídica de la pared aórtica es una manifestación excepcional, incluso en países endémicos, el diagnóstico es sumamente complejo, siendo este el primer caso con esta complicación. Las características clínicas, el manejo quirúrgico y una revisión de la literatura son discutidos.

**Palabras clave:** Fístula aortoesofágica, quiste hidatídico.

#### SUMMARY

We present an unusual case of a lower descending thoracic aorta hydatidosis having ruptured into the mediastinal portion of the esophagus forming a fistula. Since localization of a hydatid cyst in the aorta wall is an exceptional manifestation even in endemic countries, it remains a difficult diagnosis, this is the first report of a complication of this type. Clinical features, surgical management, and a review of the literature are discussed.

#### Caso clínico

Se trata de un varón de 41 años, procedente de una región agrícola y ganadera, que fue remitido a nuestro hospital con la sospecha de quiste hidatídico multilobulado en el mediastino póstero-inferior. Tras realizarle una toracotomía posterolateral derecha, se encontró una masa no pulsátil adherida a la pared aórtica. La lesión fue abierta y su contenido (múltiples vesículas hijas mezcladas con sangre) fue evacuado. No se encontró una clara comunicación entre la capa periquística y la luz arterial. La reparación fue mediante la colocación de un parche de Teflon y la pared periquística restante fue suturada sobre él. El informe histopatológico confirmó la sospecha diagnóstica de quiste hidatídico multilobulado con múltiples vesículas prolíferas en su interior. Tras un postoperatorio satisfactorio fue dado de alta con tratamiento antihelmíntico (Mebendazol 1,5

\* Servicio de Cirugía Torácica. Hospital Clínico Universitario, Valladolid.

\*\* Servicio de Angiología y Cirugía Vascular. Hospital Central de Asturias. (España).

gm. cada 8 horas). Durante los primeros 5 años del postoperatorio, el paciente continuó con controles clínicos anuales, permaneciendo asintomático, sin alteraciones radiológicas y con serología para hidatidosis positiva (ELISA e inmunolectroforesis), a pesar de continuar con tratamiento médico antihelmíntico.

Tras 5 años de la investigación inicial, el paciente reingresó aquejado de un violento dolor interescapular irradiado al hombro izquierdo, asociándose con prurito y disfagia. Dos meses antes de este ingreso sufrió una crisis generalizada de rubor, sudoración, rash cutáneo y una corta pérdida de conciencia, etiquetándose como reacción anafiláctica. La exploración física fue normal. La serología para hidatidosis fue positiva (ELISA e inmunolectroforesis). En la radiografía de tórax se observó una opacidad en el mediastino pósteroinferior. El TAC mostró una imagen multilobulada en el mediastino inferior íntimamente relacionada con la pared aórtica. El espacio retroperitoneal contenía algunos quistes cerca de la Vena Cava Inferior. Se realizó una RNM confirmándose la recidiva de quistes en la pared aórtica torácica con protrusión de vesículas endoluminales (Figs. 1 y 2). El esófago estaba desplazado anteriormente y a la derecha.

No se pudo realizar un aortograma por alergia a contrastes yodados. Se le recomendó la necesidad de realizarle una intervención quirúrgica debido al riesgo de posible rotura de aorta torácica descendente y con el fin

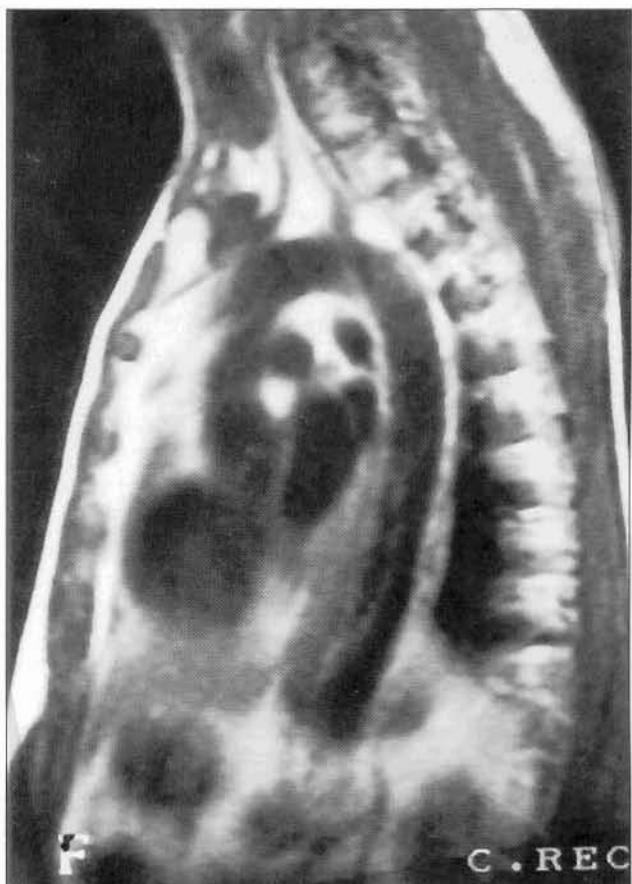


Fig. 2.: RNM: quistes en pared aórtica con protrusión de vesículas endoluminales.

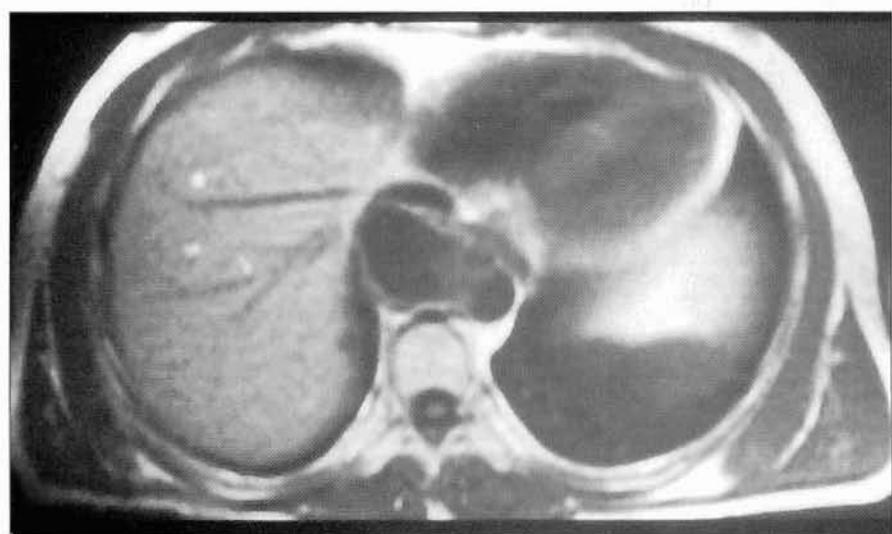


Fig. 1.: TAC torácico: imagen multilobulada en mediastino inferior relacionada íntimamente con pared aórtica.

de evitar la migración distal del quiste hidatídico. El paciente rechazó la intervención quirúrgica, siendo dado de alta con tratamiento médico (Mebendazol). Al año siguiente reingresó por epigastralgia aguda y hematemesis. El paciente falleció por hemorragia masiva. La autopsia demostró una fistula aortoesofágica a través del quiste hidatídico multivesicular.

## Discusión

La hidatidosis en el hombre está principalmente causada por la infección parasitaria por la larva del *Echinococcus granulosus*. Este parásito es endémico en países con predominante ganadería ovina, particularmente Australia, Área mediterránea, África del Norte y Sudamérica. El *E. granulosus* adulto se manifiesta mediante pequeñas formas solitarias halladas en el intestino del perro; pero ellos liberan huevos desde sus segmentos gravídicos, que son pasados en las heces. El hombre adquiere la infección mediante la ingesta de huevos. Normalmente, el embrión hexacanto liberado desde el huevo atraviesa la pared intestinal y sigue la circulación portal, donde con frecuencia se detiene. Cuando esto no sucede, puede ser atrapado en la circulación pulmonar. Raramente, estos dos filtros fallan y el embrión llega a la circulación general y se implanta en otro lugar, como ocurre en nuestro paciente. Se pueden crear muchas hipótesis sobre la forma en que se alcanza la pared arterial. En nuestro caso, parece probable que ésta fue afectada por una hidatidosis secundaria adyacente en el mediastino. El dolor interescapular, sufrido previo al descubrimiento de la recidiva del quiste hidatídico, pudo deberse a la rotura de la pared aórtica. La fistula esofágica pudo ocurrir como resultado de la presión desde el quiste hidatídico en crecimiento, causando la erosión y necrosis isquémica del esófago con cambios inflamatorios crónicos del tejido circundante a la perforación. Como la localización arterial es excepcional, ya que tan sólo cinco casos de hidatidosis arterial han sido publicados en la literatura, el diagnóstico sigue siendo difícil.

*Pardal et al.* (1) describió un caso de quiste hidatídico en aorta abdominal, con isquemia crónica progresiva de extremidades inferiores y repetidos episodios de shock anafiláctico debido a embolismos distales. El paciente fue tratado satisfactoriamente mediante la total eliminación del quiste y un bypass aorto-bifemoral de Dacron.

*Rada* (2) publicó un caso de síndrome isquémico de extremidades inferiores producido por oclusión de la arterial femoral superficial. Aunque el quiste se drenó y el paciente se trató con drogas vasodilatadoras, el quiste recidivó tres años más tarde.

*Hadjiat et al.* (3) publicó un caso de un quiste hidatídico retroperitoneal que se rompió a aorta abdominal infrarrenal. El tratamiento inicial consistió en marsupialización del quiste con angioplastia con parche de Dacron. Dos meses más tarde se formó un pseudoaneurisma, realizándose una nueva intervención con colocación de un bypass aorto-bifemoral, pero el paciente murió en el postoperatorio.

*Hendaoui et al.* (4) presentó un caso de quiste hidatídico de aorta torácica. Aunque el paciente fue tratado mediante el drenaje de la cavidad y parche con angioplastia de aorta mediante la pared del quiste, el paciente murió por hemorragia masiva.

Finalmente, *Biglioli et al.* (5) publicó una reparación satisfactoria de un falso aneurisma hidatídico de aorta torácica mediante la excisión quirúrgica y angioplastia de arco con parche de Dacron.

En definitiva, el diagnóstico de hidatidosis arterial es sumamente complejo dado que la afectación hidatídica de la pared aórtica es excepcional, incluso en países endémicos. El uso de la periquística como parche de angioplastia o de refuerzo está asociado a recidiva quística, presencia de pseudoaneurismas o dehiscencia de sutura. En esta infección parasitaria de pared aórtica se recomienda el reemplazamiento protésico in-situ. El uso de homoinjertos criopreservados no está documentado en la literatura. Aunque creemos que puedan ser utilizados, no sería necesario ya que tras la extirpación total de todos los quiste eliminamos la infestación parasitaria, pudiendo utilizarse injertos protésicos. No existe en la actualidad un tratamiento médico satisfactorio.

## BIBLIOGRAFIA

1. PARDAL, H. C.; GONZÁLEZ-ORUS, J. M.; DOMÍNGUEZ, F. et al.: Hydatid mesoarteritis in the abdominal aorta: case report. *Angiology*, 1985; 1:889-894.
2. RADA, I. O.: Ischaemic syndrome of the lower limb produced by a hydatic cyst. *J. Cardiovasc. Surg.*, 1986; 27:282-285.

3. HADJAIAT, N.; GRABA, A.; MANSOURI, H.: Rupture of retroperitoneal hydatid cyst into the abdominal aorta. *Ann. Vasc. Surg.*, 1986; 1:483-485.
4. HENDAOUI, L.; SIALA, M.; FORATI, A.; THAMEUR, M. H.; HAMZA, R.: Case report: Hydatid cyst of the aorta. *Clin. Radiol.*, 1991; 43:423-425.
5. BIGLIOLI, P.; SPIRITO, R.; ROBERTO, M. et al.: False hydatidic aneurysm of the thoracic aorta. *Ann. Thorac. Surg.*, 1995; 59:524-525.