

Tratamiento endovascular urgente de una fístula aortobronquial primaria. Presentación de un caso y revisión de la bibliografía

A. Rodríguez-Morata^a, J. Garrido-Jiménez^b, J. Cuenca-Manteca^c, E. Ros-Díe^c

TRATAMIENTO ENDOVASCULAR URGENTE DE UNA FÍSTULA AORTOBRONQUIAL PRIMARIA. PRESENTACIÓN DE UN CASO Y REVISIÓN DE LA BIBLIOGRAFÍA

Resumen. Introducción. La fístula aortobronquial es una comunicación patológica entre la aorta torácica y el árbol bronquial, habitualmente del hemitórax izquierdo. Se trata de un cuadro muy poco frecuente en la actualidad, aunque letal en su evolución natural sin tratamiento. La mayoría de éstas se presentan como complicaciones secundarias de la cirugía clásica sobre la aorta torácica, o de forma secundaria a aneurismas micóticos y pseudoaneurismas aórticos posttraumáticos. Caso clínico. El caso descrito destaca por la presencia de un aneurisma sacular fistulizado al árbol bronquial izquierdo en una paciente precisamente sin factores de riesgo de arteriosclerosis, antecedentes traumáticos, quirúrgicos ni infecciosos. Mediante implante urgente de endoprótesis aórtica torácica conseguimos su sellado con éxito. Aportamos junto a nuestro caso una revisión bibliográfica sistematizando la presentación clínica, el diagnóstico y el tratamiento adecuado. Conclusión. Consideramos esta entidad clínica subsidiaria de tratamiento urgente por su potencial letal latente, mediante implante de endoprótesis aórtica como primera elección frente al tratamiento quirúrgico convencional. [ANGIOLOGÍA 2008; 60: 419-24]

Palabras clave. Complicaciones aorta torácica. Endovascular. Fístula. Fístula aortobronquial. Fístula aortopulmonar. Hemoptisis.

Introducción

La fístula aortobronquial (FAB) es una comunicación patológica entre la aorta torácica y un segmento del árbol respiratorio, habitualmente del árbol bronquial izquierdo. Se trata de una entidad clínica rara pero potencialmente mortal si no se diagnostica a

tiempo y recibe tratamiento quirúrgico urgente adecuado [1]. Rara vez se originan de forma primaria a partir de aneurismas arterioscleróticos. La gran mayoría son complicaciones tardías de intervenciones quirúrgicas abiertas sobre la aorta torácica o bien secundarias a aneurismas micóticos o a pseudoaneurismas postraumáticos de la aorta torácica [2]. En la última década el tratamiento se ha orientado hacia la cirugía endovascular, ya que la reparación abierta se asocia a altas cifras de morbilidad.

Caso clínico

Mujer de 66 años de edad sin factores de riesgo vascular ni antecedentes patológicos de interés, que in-

Aceptado tras revisión externa: 20.10.08.

^aServicio de Angiología y Cirugía Vascular. Hospital Universitario Clínico Virgen de la Victoria. Málaga. ^bServicio de Cirugía Cardíaca. Hospital Universitario Ramón y Cajal. Madrid. ^cServicio de Angiología y Cirugía Vascular. Hospital Universitario Clínico San Cecilio. Granada, España.

Correspondencia: Dr. Alejandro Rodríguez Morata. Servicio de Angiología y Cirugía Vascular. Hospital Universitario Clínico Virgen de la Victoria. Campus Universitario de Teatinos. Apdo. 3091. E-29010 Málaga. E-mail: rodriguezmorata@telefonica.net

© 2008, ANGIOLOGÍA

gresó el 28 de febrero de 2005 en el Servicio de Medicina Interna de un hospital comarcal para el estudio de un cuadro de hemoptisis leve pero persistente, sin otra sintomatología acompañante. En una tomografía computarizada (TC) torácica realizada se descubrió un aneurisma sacular en la aorta torácica distal a la salida de la arteria subclavia izquierda. Ante tal hallazgo se decide el traslado al Servicio de Cirugía Cardíaca regional, donde para mejor filiación se lleva a cabo una resonancia magnética y angiorresonancia con gadolinio. De esta forma se define mejor la lesión (Fig. 1a): aneurisma sacular de 20 mm de *ostium*, 25 mm de diámetro transversal y 60 mm de diámetro máximo. Aorta proximal y distal a la lesión, 32 y 28 mm, respectivamente. No se aprecian signos de fistulización; sin embargo, se observa una pared muy engrosada con la presencia de un hematoma que simula una neoformación del lóbulo apical pulmonar izquierdo, de aproximadamente 43 mm, que muestra un realce progresivo de su parte externa tras la administración del contraste (Fig. 1b). La imagen es compatible con una úlcera penetrante con rotura y formación de hematoma acompañante. No hay extensión del hematoma al mediastino ni otras lesiones vasculares.

De forma espontánea sufre un cuadro de hemoptisis masiva con pérdida de conocimiento e ingreso en la Unidad de Cuidados Intensivos (UCI) para estabilización con ventilación mecánica. Se practica una fibrobroncoscopia urgente donde se aprecian abundantes restos hemáticos antiguos en el árbol bronquial izquierdo, sin hemorragia activa. Asimismo, se lleva a cabo una endoscopia digestiva urgente con la apreciación de abundantes restos hemáticos deglutidos sin hemorragia activa.

Ante el diagnóstico muy probable de FAB, se decide el traslado inmediato al Servicio de Angiología y Cirugía Vascular del Hospital Universitario Clínico San Cecilio de Granada, donde el 16 de marzo de 2005 se prepara para su intervención urgente. Se sustituye el tubo orotraqueal por otro de doble luz, ma-

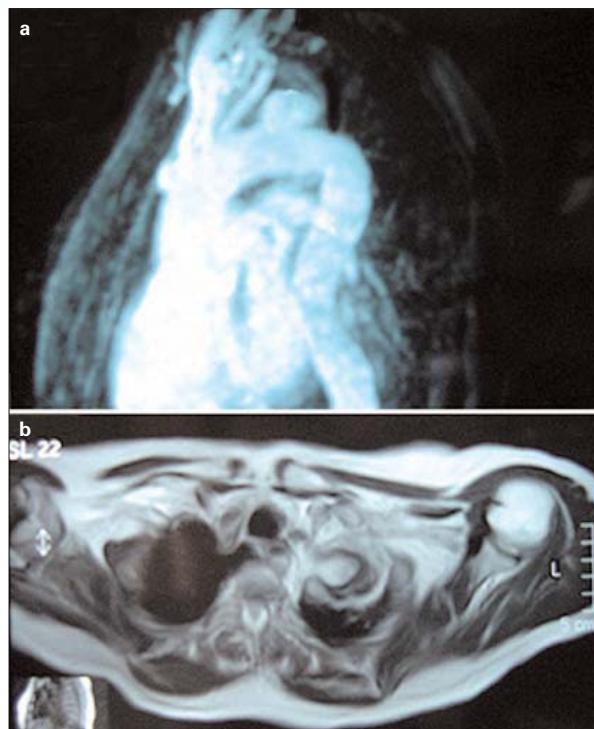


Figura 1. a) Angiorresonancia magnética con gadolinio, donde se aprecia aneurisma sacular distal a la subclavia izquierda. Diámetro máximo de 60 mm. No se aprecian signos de fistulización; b) Resonancia magnética, corte axial a la altura del aneurisma sacular, donde observamos engrosamiento de la pared, posible úlcera penetrante y hematoma por fisuración o fístula.

nobra que inestabiliza aún más hemodinámicamente a la enferma. La hemorragia activa se extiende a través del propio tubo del bronquio izquierdo y alrededor del mismo, procediéndose al pinzamiento del mismo y a la aspiración intermitentemente durante todo el procedimiento. Abordamos con premura ambas femorales comunes a la altura inguinal, heparinizamos sistémicamente con 5.000 UI y, por punción retrógrada de la femoral izquierda, accedemos con una guía de teflón y, posteriormente, un *pig-tail* calibrado, hasta la aorta ascendente. Llevamos a cabo una aortografía donde observamos la lesión aneurismática sacular, sin poder apreciar signos de fistulización (Fig. 2a). A través de la femoral derecha introducimos una guía de teflón hasta la aorta ascendente y subimos un catéter recto para llevar a cabo poste-

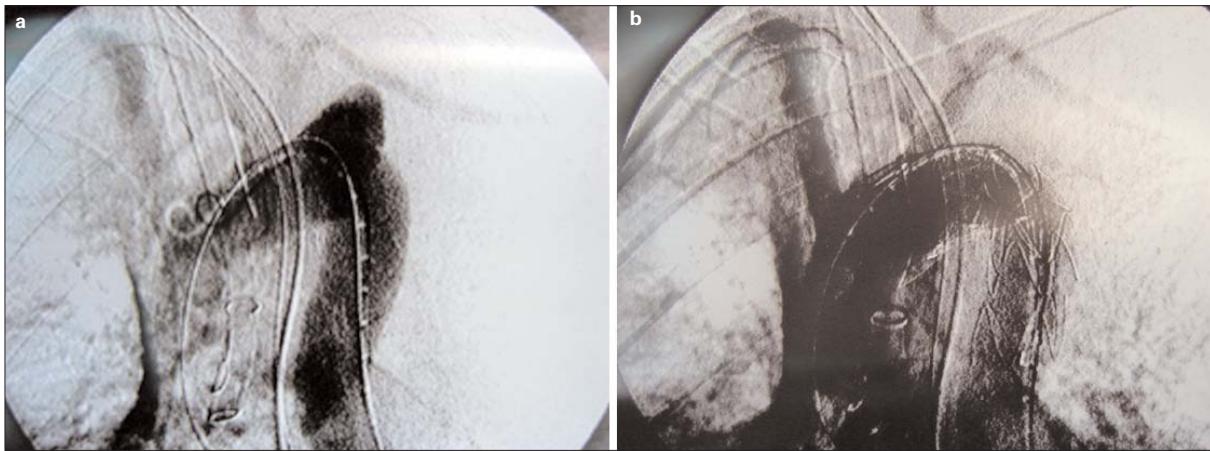


Figura 2. a) Aortografía intraoperatoria donde apreciamos aneurisma sacular y ausencia de fistulización. Véanse explicaciones en el texto; b) Aortografía de control tras implante y remodelación de la endoprótesis Talent (Medtronic®) inmediatamente distal a subclavia izquierda. Ausencia de fugas agudas.

riormente el intercambio por otra guía (Amplatz). Subimos por ésta mediante una arteriotomía transversal y desplegamos una endoprótesis torácica Talent (Medtronic®) de 34 mm de diámetro proximal y distal, 115 cm de longitud y un grosor del catéter de 24 F. La emplazamos proximalmente en la salida de la arteria subclavia izquierda gracias al *road mapping*, sin ocluirla. Una vez remodelada la endoprótesis con un balón tipo Reliant (Medtronic), comprobamos con una nueva ortografía mediante el *pig-tail* inicial (resituado dentro de la endoprótesis), la ausencia de fugas y el sellado perfecto del aneurisma (Fig. 2b). Retiramos los dispositivos, revertimos con protamina y cerramos según la técnica habitual.

El curso postoperatorio, inicialmente, es desfavorable, con necesidad de nueva fibrobroncoscopia urgente donde se aprecia un coágulo en formación muy móvil en la entrada del bronquio principal izquierdo que obstruye casi el 50% de su luz, con extensión distal, observándose su procedencia desde el bronquio culminar. Al no poder retirarlo con el fibrobroncoscopio pediátrico, se sustituye el tubo de doble luz por un tubo orotraqueal convencional de 8,5 mm y a su través se introduce el fibrobroncoscopio p-40, y se consigue aspirar los coágulos referidos y dejar permeable la vía aérea principal.

La paciente mejora progresivamente su estado general con el apoyo de hemoderivados y puede extubar horas más tarde. En 48 horas abandona el Servicio de Medicina Intensiva y la evolución en planta es favorable. Se lleva a cabo una TC contrastada que descarta fugas en el saco aneurismático. La radiografía simple de tórax también evidencia el correcto despliegue y la persistencia de la masa inflamatoria en vértice izquierdo (Fig. 3). Los hemocultivos resultan negativos, así como los cultivos de los esputos hemoptoicos y serologías de *Brucella* y lúes. Aun así se instauró un tratamiento antibiótico de amplio espectro por vía oral de forma empírica que se mantiene por cuatro semanas. Cuatro días más tarde la paciente es dada de alta hospitalaria, asintomática y con buen estado de las heridas quirúrgicas inguinales. La primera revisión se lleva a cabo a los tres meses, permanece asintomática y con una TC se comprueba la exclusión correcta del aneurisma. Posteriormente, el seguimiento se espacia y a los 40 meses aún permanece estable y sin complicaciones secundarias.

Discusión

La FAB es una entidad clínica muy infrecuente, aun-

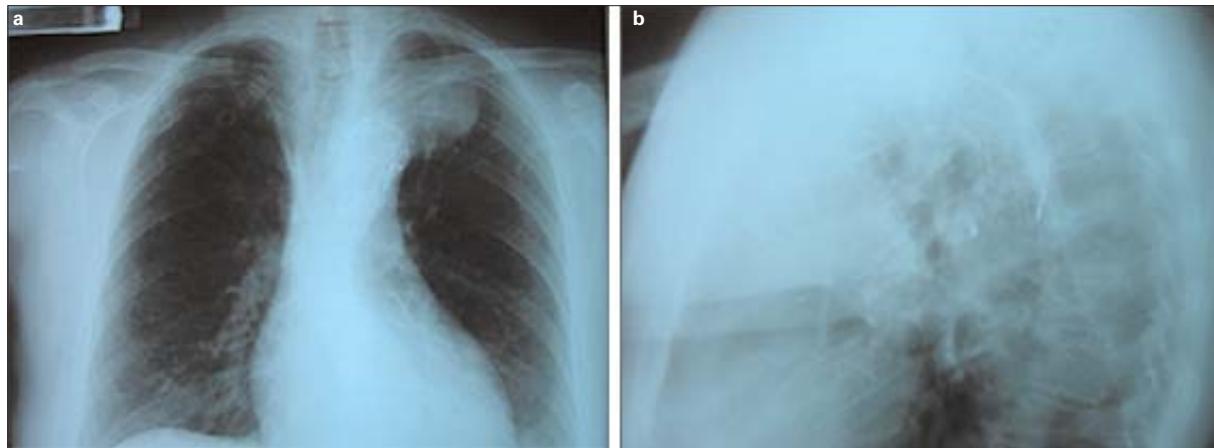


Figura 3. La radiografía simple de tórax, postoperatoria, evidencia el despliegue correcto de la endoprótesis y persistencia de la masa inflamatoria residual en el vértice izquierdo.

que ya definida en 1914 por el Dr. Girardet, que describe un caso aortotraqueal y, posteriormente, los Dres. Keefer y Mallory, que publicaron en 1934 seis casos de autopsias [3]. Hasta nuestros días existen publicados algo más de un centenar de casos tratados quirúrgicamente por técnicas abiertas o endoluminales. La mayoría de los casos de FAB son secundarios a intervenciones quirúrgicas abiertas sobre la aorta torácica [4,5]. En una serie consecutiva de 145 pacientes intervenidos por aneurismas torácicos y toracoabdominales, se comunicó hasta un 5,5% de desarrollo tardío de FAB [6]. Otras formas etiológicas son los raros aneurismas micóticos o los pseudoaneurismas postraumáticos cada vez más frecuentes de la aorta torácica [5]. El caso descrito destaca por la presencia de un aneurisma sacular fistulizado al árbol bronquial izquierdo en una paciente precisamente sin factores de riesgo de arteriosclerosis, sin antecedentes traumáticos, quirúrgicos y ausencia de infección demostrada por patógenos responsables habitualmente de aneurismas micóticos.

Su forma de manifestación más frecuente es la hemoptisis, presente hasta en un 95% de pacientes [3]. Típicamente es de escasa cuantía e intermitente, pero en más de la mitad de los casos puede llegar a ser masiva, como el caso que nos ocupa. Otros sínto-

mas son el dolor torácico inespecífico, hasta un 45% de los casos, tos y disnea [2]. La FAB en su evolución natural conduce invariabilmente a la muerte por hemoptisis masiva espontánea. Por ello, ante la coexistencia de antecedentes quirúrgicos previos, independientemente del tiempo transcurrido y hemoptisis, debe descartarse este cuadro clínico de forma urgente. No hay datos que establezcan claramente la relación entre la intervención y el tiempo que puede tardar en desarrollarse una FAB. En este sentido, se han comunicado casos de FAB en pacientes intervenidos desde la tercera semana postoperatoria y hasta 25 años después de la cirugía aórtica; por esta razón, es importante tener un grado de sospecha elevado ante un cuadro de hemoptisis en un paciente con estos antecedentes [7].

En el diagnóstico por la imagen, la radiografía simple de tórax es elemental. Puede orientar la existencia de aneurismas en la aorta torácica y condensaciones en el parénquima pulmonar por la inflamación reactiva o hemorragia localizada [6]. La TC con contraste y con la posibilidad de reconstrucción tridimensional y la angiorresonancia magnética muestran claramente la aorta torácica y detallan sus relaciones anatómicas. Ambas pueden revelar la existencia de aneurismas, pseudoaneurismas o disecciones

de aorta torácica, así como la existencia de hematomas periaórticos y posibles áreas de consolidación del parénquima pulmonar. Son de una alta rentabilidad diagnóstica y es difícil precisar cuál de ellas representaría la prueba de elección [1]. La fibrobroncoscopia es necesaria para descartar otras patologías orgánicas en el árbol traqueobronquial responsables de hemoptisis. La ecocardiografía transesofágica puede determinar con exactitud la situación de la FAB. La aortografía rara vez identifica el trayecto fistuloso, habitualmente sellado por coágulos adheridos [4], como en nuestro caso.

Hasta la última década, el tratamiento de las fístulas aortobronquiales ha sido la cirugía convencional, con la práctica de una toracotomía izquierda, reparación aórtica, exclusión del trayecto fistuloso y la eventual resección pulmonar atípica. Las cifras de morbimortalidad comunicadas se basan sólo en pequeñas series de pacientes, pero se acepta en términos generales una mortalidad entre el 13 y el 30% tras la reparación quirúrgica, a largo plazo [1,5,6].

El tratamiento eficaz de la aorta torácica mediante endoprótesis ante roturas traumáticas y fístulas aortobronquiales es un hecho probado [8,9]. Aunque no hay series suficientes que definan el pronóstico a largo plazo, existen buenos resultados comunicados inicialmente con una mortalidad por debajo del 10% al mes de la intervención [10]. Nosotros decidimos resolver el caso de forma endoluminal, en función de nuestra propia experiencia y de la de otros grupos en el sector de aorta torácica y por considerar su menor morbimortalidad que la asociada a la reparación convencional abierta.

En conclusión, la FAB, independientemente de su etiología, conduce a la muerte por hemoptisis masiva si no recibe tratamiento quirúrgico precoz. Hoy día hay experiencia suficiente para afirmar que la exclusión endovascular de una FAB mediante endoprótesis aórtica es de primera elección frente al tratamiento quirúrgico convencional, esencialmente por razones de seguridad, accesibilidad y morbimortalidad.

Bibliografía

- Quintana JL, Castroleza R, Heras F, Gutiérrez V, Guzmán D, Ortiz J. Hemoptisis en un paciente con el antecedente de corrección quirúrgica de una tetralogía de Fallot. Arch Bronconeumol 2000; 36: 494-6.
- Liu SH, Chen Y, Chih M, Kao CH. Thoracic aortic aneurysm with aortobronchial fistula: a thirteen-year experience. Heart Lung 2004; 33: 119-23.
- Oppenheimer R, Brotherton L. Aortobronchial fistula: a rare etiology for hemoptysis. Ear Nose Throat J 2002; 81: 257-9.
- Menant A, Norese M, Shinzato S, La Mura R. Fístula aortobronquial por aneurisma de aorta: tratamiento endovascular. Angiología 2007; 59: 387-91.
- Dilmé-Muñoz J, Escudero-Rodríguez JR, Llauger-Roselló J, García-Moll Marimón X, Barreiro-Veiguela J, Viver-Manresa E. Exclusión endoprotésica de fístula aortobronquial con hemoptisis. Angiología 2003; 55: 534-41.
- Von Segesser LK, Tkebuchava T, Niederhauser U, Kunzli A, Lachat M, Genoni M, et al. Aortobronchial and aortoesophageal fistulae as risk factors in surgery of descending thoracic aortic aneurysm. Eur J Cardiothorac Surg 1997;12: 195-201.
- Algabe-Calderón A, Jara-Chinarro B, Abad-Fernández A, Isidoro-Navarrete O, Ramos-Martos A, Juretschke-Moragues MA. Recurrent hemoptysis secondary to an aortobronchial fistula. Arch Bronconeumol 2005; 41: 352-4.
- Cuenca-Manteca J, Salmerón-Febres LM, Rodríguez-Carmona RB, Sellés-Galiana F, Ramos-Gutiérrez VE, Linares-Palomino JP, et al. Reparación endovascular de la rotura aórtica torácica en traumatismos cerrados. Presentación de dos casos. Angiología 2006; 58: 481-7.
- Sánchez I, Escudero-Rodríguez JR, Orellana-Fernández GA, Dilmé-Muñoz JF, Surcel P, Davins-Riu M, et al. Tratamiento endovascular de la patología aórtica excepcional. Angiología 2006; 58: 431-6.
- Quintana AL, Aguilar EM, Heredero AF, Riambau V, Paul L, Acín F. Aortobronchial fistula after aortic coarctation. J Thorac Cardiovasc Surg 2006; 131: 240-3.

URGENT ENDOVASCULAR TREATMENT OF A PRIMARY AORTOBRONCHIAL FISTULA.
A CASE REPORT AND REVIEW OF THE LITERATURE

Summary. Introduction. An aortobronchial fistula is a pathological communication between the thoracic aorta and the bronchial tree, usually the left hemithorax. It is a rare condition today, although its natural history has fatal consequences if left untreated. Most cases present as complications arising from classical surgery on the thoracic aorta or secondary to post-traumatic aortic pseudoaneurysms and mycotic aneurysms. Case report. The most striking feature of this case is the presence of a fistulised saccular aneurysm in the left bronchial tree in a female patient who had no risk factors for arteriosclerosis or any history of traumatic injuries, surgical interventions or infections. It was successfully sealed by urgent placement of a thoracic aortic stent. Our case report is accompanied by a review of the literature that systematises the presenting symptoms, the diagnosis and suitable treatment. Conclusions. Owing to its latent fatal potential, we consider this clinical condition to be amenable to urgent treatment by placement of an aortic stent as the preferred treatment rather than conventional surgical treatment. [ANGIOLOGÍA 2008; 60: 419-24]

Key words. Aortobronchial fistula. Aortopulmonary fistula. Endovascular. Fistula. Thoracic aorta complications.