

Exclusión endoprotésica de fístula aortobronquial con hemoptisis

J. Dilmé-Muñoz^a, J.R. Escudero-Rodríguez^a, J. Llauger-Roselló^b,
X. García-Moll Marimón^c, J. Barreiro-Veiguela^a, E. Viver-Manresa^a

ENDOPROSTHETIC EXCLUSION OF AORTOBRONCHIAL FISTULA WITH HAEMOPTYSIS

Summary. Introduction. *This study describes the use of an endovascular technique to repair an aortobronchial fistula (ABF) that began in an anastomotic aortic pseudoaneurysm secondary to multiple aortic surgical interventions performed to repair a descending thoracic aortic aneurysm (TAA).* Case report. *A 51-year-old male, an ex-smoker and drinker with chronic liver disease and with chronic limited air flow, who presented significant haemoptysis due to ABF secondary to a pseudoaneurysm following a number of aortic surgical interventions carried out to repair the descending TAA, repair secondary ABF and repair a pseudoaneurysm of the aortic arch with inclusion of the left subclavian artery using the elephant trunk technique. Diagnosis of ABF was achieved by computerised tomography (CT), resonance angiography and digital subtraction angiography (DSA). The patient was submitted to endovascular repair using an iliac approach, due to the high risk involved in a conventional repair, with the placement of a covered stent inside the existing Dacron prosthesis, and the point where the fistula leaked was covered. The check-up DSA performed in theatre showed the absence of leaks. The patient was discharged 5 days after the operation, with no complications and with antiplatelet therapy. In the follow-up at 2 years, the patient remained clinically asymptomatic and no complications were observed in the control CT scan.* Conclusions. *ABF that presents as severe haemoptysis is a process with a torpid progression and is, in many cases, fatal, with a difficult therapeutic management, especially in cases in which surgery has been carried out previously. The endovascular approach is a useful alternative in these cases and lowers the morbidity and mortality of conventional open surgery.* [ANGIOLOGÍA 2003; 55: 534-41]

Key words. Aortobronchial fistula. Covered stent. Endovascular. Haemoptysis. Pseudoaneurysm. Thoracic aortic aneurysm.

Introducción

La formación de pseudoaneurismas es una complicación rara de las reconstrucciones quirúrgicas de la aorta torácica. La erosión dentro de un bronquio, con la pro-

ducción de una fístula aortobronquial (FAB), habitualmente conduce a la muerte por hemoptisis [1]. Puede producirse una hemoptisis de alerta, antes de que exista un sangrado masivo, o se puede presentar sin avisar y ser el único síntoma de pre-

^a Servicio de Angiología, Cirugía Vascular y Endovascular. ^b Servicio de Radiología. ^c Servicio de Cardiología. Hospital de la Santa Creu i Sant Pau. Barcelona, España

Correspondencia:

Dr. Jaume Dilmé Muñoz. Servicio de Angiología, Cirugía Vascular y Endovascular. Hospital de la Santa Creu i Sant Pau. Avda. Sant Antoni M. Claret, 167. E-08025 Barcelona. Fax: +34 932 919 268. E-mail: jdilme@hsp.santpau.es

© 2003, ANGIOLOGÍA

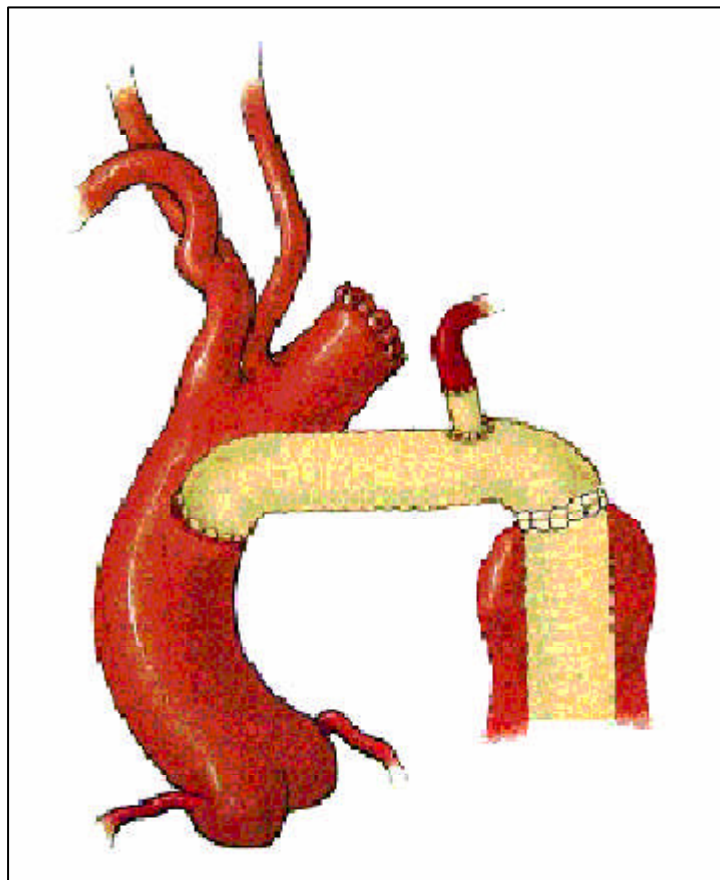


Figura 1. Esquema del cayado aórtico en el momento de la hemoptisis: Dacron a modo de *elephant trunk* en aorta descendente, anastomosis lateroterminal en la aorta ascendente y reimplantación de la arteria subclavia izquierda.

sentación [2]. Las hemoptisis masivas producidas por FAB pueden ser una complicación de los aneurismas y los pseudoaneurismas después de una sustitución aórtica por material protésico [3].

El manejo de las FAB suele comportar resección e interposición protésica, lo que supone un elevado riesgo de muerte y de parálisis, sobre todo en el caso de los pseudoaneurismas. Aun cuando los pacientes sobreviven a este tipo de intervenciones, la mortalidad de los pseudoaneurismas de aorta torácica (PSAAT) es alta, la reparación suele ser difícil y

los pacientes presentan una situación comprometida debido a las pérdidas sanguíneas y la situación funcional pulmonar deteriorada.

Las endoprótesis aórticas (*stents* recubiertos) se han usado para tratar los aneurismas de aorta torácica (AAT) en pacientes de alto riesgo, incluidos aquellos que presentaban FAB [4-12]. Cerrar el punto de fuga mediante una endoprótesis es una nueva alternativa que no requiere toracotomía, pinzamiento aórtico o derivación cardiopulmonar [4].

Presentamos el caso de una FAB con la complicación de un pseudoaneurisma anastomótico. Debido a las múltiples cirugías del cayado aórtico que el paciente presentaba, se usó una nueva vía de abordaje endovascular (EV), con éxito, para la reparación de la FAB.

Caso clínico

El paciente es un varón de 51 años, exfumador y exalcohólico desde hace 8 años, con hepatopatía crónica y función pulmonar afectada con limitación crónica al flujo aéreo (LCFA). En 1982, el paciente ingresó en nuestro hospital por presentar disnea y parestesias en el brazo izquierdo. La tomografía computarizada (TC) y la arteriografía de sustracción digital (ASD) que se le realizaron, mostraron la existencia de un AAT descendente que incluía a la arteria subclavia izquierda. El paciente se intervino y se le realizó un recambio del aneurisma por una prótesis de Dacron, con una reimplantación de la arteria subclavia izquierda, utilizando una toracotomía posterolateral izquierda.

En 1991, el paciente inició unos episodios de hemoptisis que propiciaron el diagnóstico de FAB originada en el punto de canulación aórtica para la circulación extracorpórea (CEC) durante la operación de 1982, por lo que se realizó un cierre de la FAB y un cerclaje de la aorta con un parche de Dacron.

En 1998, debido a una disnea progresiva, se efectuó una radiología simple de tórax en la que se descubre una masa mediastínica que comprime el lóbulo superior izquierdo. Mediante una TC y una angiorresonancia magnética (ARM) se detecta la existencia de un pseudoaneurisma aórtico que afecta al arco y a la arteria subclavia izquierda, y se respeta tanto el tronco innominado como la aorta ascendente y descendente. En enero de 1998, debido a la dehiscencia de la anastomosis previa, se realizó una esternotomía media con CEC para extraer la prótesis previa y cerrar la aorta posteriormente a la salida de la arteria carótida y del tronco innominado, con la realización de una técnica de *elephant trunk* en la aorta descendente con una prótesis de Dacron de 28 mm y una anastomosis lateroterminal en la aorta ascendente. Asimismo, se reimplantó de nuevo la arteria subclavia izquierda (Fig. 1).

En marzo del 2001, el paciente reingresó en el hospital por presentar una hemoptisis grave, pero autolimitada. En la TC realizada de urgencias se apreciaba un pseudoaneurisma de arco aórtico (PSAAA), con colapso del lóbulo superior izquierdo. La ARM confirmaba la presencia de un pseudoaneurisma de 3 cm de diámetro de la anastomosis en la aorta torácica descendente y otro pseudoaneurisma de 4 cm de diámetro de la anasto-

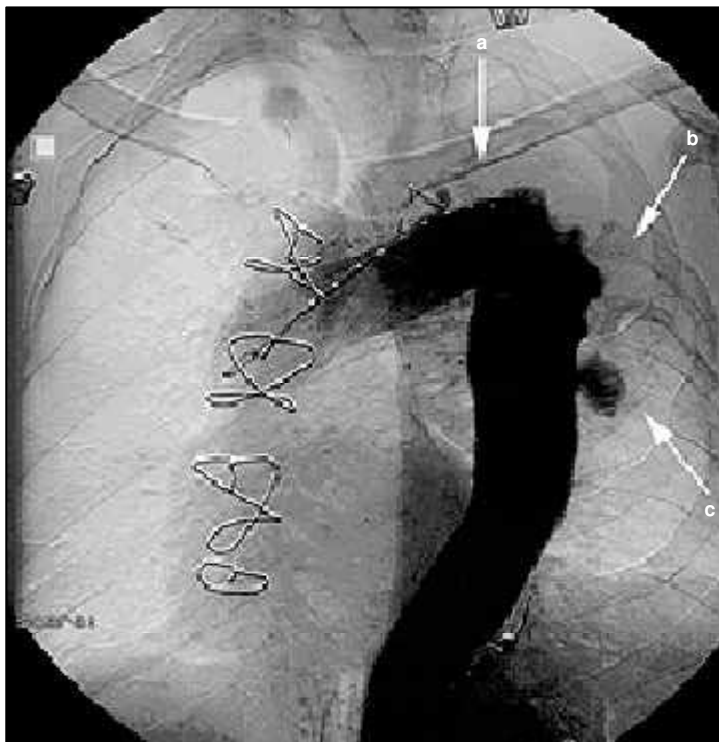


Figura 2. Arteriografía de sustracción digital, que muestra oclusión del origen de la arteria subclavia izquierda (a), múltiples pseudoaneurismas de la anastomosis distal (b) y presencia de fístula aortobronquial con fuga de contraste (c).

mosis lateroterminal. La gammagrafía con leucocitos marcados confirmó la ausencia de infección protésica. Una arteriografía centimetrada puso de manifiesto la oclusión del origen de la arteria subclavia izquierda y la posterior repermeabilización a través de la arteria vertebral, con presencia de múltiples pseudoaneurismas en la unión del Dacron con la aorta descendente y el origen de la FAB (Fig. 2).

Debido a la necesidad de una reintervención, y dados los antecedentes del paciente, se consideró la posibilidad de realizar una reparación EV. Se formó un equipo multidisciplinar que englobaba a cardiólogos, anestesistas, radiólogos intervencionistas y cirujanos vasculares/endovasculares. Los riesgos de la inter-



Figura 3. Resultado inmediato intraoperatorio: ausencia de pseudoaneurismas y fugas de contraste.



Figura 4. TC con una correcta colocación de la endoprótesis aórtica y restos sanguíneos en el lóbulo pulmonar superior izquierdo.

vención, así como las alternativas existentes, se le explicaron al paciente, que otorgó el consentimiento informado.

En abril del 2001, el paciente fue intervenido bajo anestesia general y heparinización sistémica en el quirófano. Inicialmente, se realizó un abordaje inguinal izquierdo; se apreció un eje femoral de pequeño calibre, que se usó para realizar las arteriografías de control iniciales y finales. Se realizó un abordaje retroperitoneal para acceder a la arteria ilíaca izquierda, donde se realizó una anastomosis lateroterminal con una prótesis de Dacron de 10 mm × 15 cm (Hemashield Gold®, Boston Scientific Medi-Tech) para insertar el introductor de 24 Fr Sheath (Cook Corporation®) y el dispositivo a utilizar.

Bajo una hipotensión inducida farmacológicamente, se colocó una endoprótesis de 37 mm de diámetro por 20 cm de largo (Excluder®-Gore) en la prótesis de Dacron preexistente, desde el extremo proximal protésico hasta la aorta descendente. Las series angiográficas de control mostraron una exclusión completa de los pseudoaneurismas y la ausencia de fugas (Fig. 3).

Tras 24 horas en el Servicio de Intensivos, el paciente se recuperó favorablemente. No se volvieron a repetir nuevos cuadros de hemoptisis. Al paciente se le dio alta a los 5 días de la intervención, con tratamiento antiagregante, sin presentar complicaciones.

En las TC realizadas de control a las 4 y 16 semanas, se aprecia la ausencia de fugas o pseudoaneurismas (Fig. 4). Las TC posteriores (6, 12, 18 y 24 meses), no muestran roturas, migraciones o fugas, al igual que el control a los 2 años. El paciente se encuentra asintomático, no ha vuelto a presentar episodios hemoptoicos y realiza una vida normal.

Discusión

Actualmente, la mayoría de los aneurismas que presentan FAB son de etiología posquirúrgica o arteriosclerótica [7], aunque en la bibliografía se recogen otros aneurismas de etiología infecciosa (tuberculosos, sifilíticos, etc.) [2,13].

La posibilidad de una FAB tiene que considerarse siempre en aquellos pacientes que se presenten con un cuadro de hemoptisis y tengan el antecedente de intervención quirúrgica de la aorta torácica. La confirmación de que el paciente presenta un aneurisma anastomótico es el siguiente paso, y la TC se ha considerado como la mejor herramienta diagnóstica aislada; sin embargo, la visualización de la FAB sólo es posible en el 17% de los casos [8].

En nuestro caso, inicialmente se realizó una reparación quirúrgica de la FAB en 1991; la FAB se localizó en la misma zona de cateterización aórtica usada en la cirugía previa para la CEC. Sin embargo, en el segundo episodio de FAB del 2001, dados todos los antecedentes –tres toracotomías previas, una de ellas similar al caso recogido por Campagna et al [7] con FAB primaria–, el paciente se consideró como de muy alto riesgo para una nueva reparación abierta convencional, y consideramos que se trataba de un paciente que requería una reparación menos invasiva.

La reparación quirúrgica de las lesiones de arco aórtico y aorta descendente puede realizarse mediante la técnica de *clamp and go* o mediante derivación cardiopulmonar parcial [14]; sin embargo, estos procedimientos se asocian con una elevada morbilidad. La reparación quirúrgica de los PSAAT se asocia con

una mortalidad del 41%, marcadamente superior a la mortalidad de los AAT primarios, incluso los complicados con FAB o fístulas aortoesofágicas (mortalidad del 18% a los 30 días) [3,10].

Las endoprótesis vasculares ofrecen una alternativa atractiva frente a la cirugía convencional. Son mucho menos invasivas y causan una escasa repercusión hemodinámica y una mínima alteración isquémica visceral, renal o espinal. No se precisa una descoagulación total, como en la CEC y las pérdidas sanguíneas son mínimas. Los pacientes tampoco precisan estancias prolongadas en los servicios de vigilancia intensiva, y la estancia hospitalaria es mucho menor que en la cirugía abierta convencional.

La reparación EV se ha descrito frecuentemente en el manejo de las lesiones aneurismáticas y pseudoaneurismáticas no infectadas, e infectadas en menor medida, de la aorta torácica [4,5,7,15]. Este tipo de procedimiento ofrece una alternativa válida para aquellos pacientes que presenten un riesgo elevado para la reparación abierta de dichas lesiones (reintervenciones, enfermedades coadyuvantes graves, etc.), aunque se precisa un mayor seguimiento a largo plazo para establecer los resultados y las indicaciones de este tipo de técnicas EV.

Una reciente comparación de endoprótesis recubiertas para las disecciones de aorta torácica en un pequeño grupo de pacientes no aleatorizados mostraba que se podían utilizar con una mínima morbilidad con relación a la cirugía abierta, que presentaba una mortalidad del 33% y una morbilidad del 42% [16].

Las endoprótesis se han usado para tratar pseudoaneurismas en múltiples locali-

zaciones. La mayoría de estas complicaciones se asociaban con traumatismos, otros eran de etiología desconocida y otros se relacionaban con problemas infecciosos [17].

La colocación de una endoprótesis puede considerarse como el primer paso para estabilizar a un enfermo grave temporalmente, mientras se recupera del episodio agudo y se programa una reparación definitiva [18].

Existen otros casos de oclusión de FAB comunicados en la bibliografía consultada [4,6-12]. En uno de estos casos, al igual que en nuestro paciente, la colocación de la endoprótesis se facilitó por la oclusión previa de la arteria subclavia izquierda.

Aunque el posible uso de las endoprótesis aórticas en el tratamiento de los pseudoaneurismas sigue todavía en estudio, los resultados de este caso respaldan el uso de esta técnica, por ser menos invasiva para el tratamiento de los pseudoaneurismas de la aorta torácica, incluidos aquellos casos complicados con FAB [14].

La elección de este tratamiento se reforzó por el hecho de que el pseudoaneurisma aórtico no era el resultado de una complicación infecciosa. El paciente se mantenía apirético, con hemocultivos negativos y gammagrafía con leucocitos marcados negativa.

El grado de dilatación en el segmento de aorta inmediatamente adyacente a la anastomosis distal sugiere que en la reparación previa del aneurisma no se excluyó todo el segmento de aorta enferma y debilitada.

Las principales ventajas del tratamiento mínimamente invasivo en nuestro caso fueron:

1. La invasión se limitó a un abordaje retroperitoneal con arteriotomía de la arteria ilíaca izquierda.
2. No se precisaron transfusiones sanguíneas.
3. La estancia en la Unidad de Cuidados Intensivos fue de 24 h.

Además, el paciente se benefició de una menor estancia hospitalaria y recuperó una actividad física completa pocos días después del procedimiento.

Como conclusión, podríamos decir que aquellos pacientes con PSAAT complicados con FAB no aptos para tratamiento quirúrgico convencional –múltiples reintervenciones, enfermedades coadyuvantes graves con alto riesgo anestésico, enfermos ASA (American Society of Anesthesiologists) IV, etc.–, podrían beneficiarse de una reparación EV.

Bibliografía

1. Ishizaki Y, Tada Y, Takagi A, Sato O, Takayama Y, Shirakawa M, et al. Aortobronchial fistula after an aortic operation. *Ann Thorac Surg* 1990; 50: 975-7.
2. Macintosh EL, Parrot JCW, Unruh HW. Fistulas between the aorta and tracheobronchial tree. *Ann Thorac Surg* 1991; 51: 515-9.
3. Von Segesser LK, Tkebuchava T, Niederhauser U, Kunzli A, Lachat M, Genoni M, et al. Aortobronchial and aorto-esophageal fistulae as risk factors in surgery of descending thoracic aortic aneurysms. *Eur J Cardiothorac Surg* 1997; 12: 195-201.
4. Chuter TA, Ivancev K, Lindblad B, Brunkwall J, Aren C, Risberg B. Endovascular stent-graft occlusion of an aortobronchial fistula. *J Vasc Interv Radiol* 1996; 7: 357-9.
5. Semba CP, Mitchell RS, Miller DC, Kato N,

- Kee ST, Chen JT, et al. Thoracic aortic aneurysm repair with endovascular stent-grafts. *Vasc Med* 1997; 2: 98-103.
6. Karmy-Jones R, Lee CA, Nichols SC, Hoffer E. Management of aortobronchial fistula with an aortic stent-graft. *Chest* 1999; 116: 255-7.
7. Campagna AC, Wehner JH, Kirsch CM, Semba CP, Kagawa FT, Jensen WA, et al. Endovascular stenting of an aortopulmonary fistula presenting with hemoptysis: a case report. *J Cardiovasc Surg* 1996; 37: 643-6.
8. Miyata T, Ohara N, Shigematsu H, Konishi T, Yamaguchi H, Kazama S, et al. Endovascular stent graft repair of aortopulmonary fistula. *J Vasc Surg* 1999; 29: 557-60.
9. Smayra T, Otal P, Soula P, Chabbert V, Cerene A, Joffre F, et al. Pseudoaneurysm and aortobronchial fistula after surgical by-pass for aortic coarctation. *J Endovasc Ther* 2001; 8: 422-8.
10. Leobon B, Roux D, Mugniot A, Rousseau H, Cerene A, Glock Y, et al. Endovascular treatment of thoracic aortic fistulas. *Ann Thorac Surg* 2002; 74: 247-9.
11. Thompson CS, Ramaiah VG, Rodríguez-López JA, Vranic M, Ravi R, DiMugno L, et al. Endoluminal stent graft repair of aortobronchial fistulas. *J Vasc Surg* 2002; 35: 387-91.
12. Yoo JH, Lee CT, Shim YS, Chung JW, Ahn H, Kim KW. Aortobronchial fistula presenting as recurrent hemoptysis and successfully treated with an endovascular stent graft. *Respiration* 2001; 68: 537-9.
13. Masjedi MR, Davoodian P, Forouzes M, Abtahi SJ. Bronchoaortic fistula secondary to pulmonary tuberculosis. *Chest* 1988; 94: 199-200.
14. Taylor PR, Gaines PA, McGuinness CL, Cleveland TJ, Beard JD, Cooper G, et al. Thoracic aortic stent grafts—early experience from two centres using commercially available devices. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2001; 22: 70-6.
15. Semba CP, Sakai T, Slonim SM, Razavi MK, Kee ST, Jorgensen MJ, et al. Mycotic aneurysms of the thoracic aorta: repair with use of endovascular stent-graft. *J Vasc Interv Radiol* 1998; 9: 33-40.
16. Nienaber CA, Fattori R, Lund G, Dieckmann C, Wolf W, Von Kodolitsch Y, et al. Nonsurgical reconstruction of thoracic aortic dissection by stent-graft placement. *N Engl J Med* 1999; 340: 1539-45.
17. Marin ML, Veith FJ, Cynamon J, Sánchez LA, Lyon RT, Levine BA, et al. Initial experience with transluminally placed endovascular grafts for the treatment of complex vascular lesions. *Ann Surg* 1995; 222: 449-69.
18. Ezure M, Kotsuka Y, Furuse A, Kawauchi M, Kohno T, Kubota H. Repair of ruptured anastomotic aneurysm: elephant trunk technique after endovascular covered stent. *Ann Thorac Surg* 1998; 65: 241-3.

EXCLUSIÓN ENDOPROTÉSICA DE FÍSTULA AORTOBRONQUIAL CON HEMOPTISIS

Resumen. Introducción. Describimos el uso de una técnica endovascular para la reparación de una fístula aortobronquial (FAB) originada en un pseudoaneurisma aórtico anastomótico secundario a múltiples cirugías aórticas para la reparación de un aneurisma de aorta torácica (AAT) descendente. Caso clínico. Varón de 51 años, exfumador, bebedor con hepatopatía crónica y con limitación crónica al flujo aéreo, que presenta hemoptisis significativa por FAB secundaria a pseudoaneurisma tras múltiples intervenciones aórticas (reparación de AAT descendente, reparación de FAB secundaria y reparación de un pseudoaneurisma del arco aórtico, incluida la arteria subclavia izquierda, mediante la técnica de elephant trunk). El diagnóstico de FAB se realizó mediante tomografía

EXCLUSÃO ENDOPROTÉSICA DE FÍSTULA AORTOBRÔNQUICA COM HEMOPTISE

Resumo. Introdução. Descrever o uso de uma técnica endovascular para a reparação de uma fístula aortobrônquica (FAB) com origem num pseudo-aneurisma aorto-anastomótico secundário a múltiplas cirurgias aórticas, para a reparação de um aneurisma da aorta torácica (AAT) descendente. Caso clínico. Homem de 51 anos, ex-fumador, bebedor com hepatopatia crónica e com limitação crónica do fluxo aéreo, que apresenta hemoptise significativa por FAB secundária a pseudo-aneurisma após numerosas intervenções aórticas: reparação da AAT descendente, reparação da FAB secundária e reparação de um pseudo-aneurisma do arco aórtico com inclusão da artéria subclávia esquerda mediante técnica de elephant trunk. O diagnóstico FAB realizou-se mediante tomografia computadorizada (TC), angio-

computarizada (TC), angiorresonancia y angiografía de sustracción digital (ASD). El paciente se sometió a reparación endovascular mediante un abordaje ilíaco, debido al alto riesgo de una reparación convencional. Se colocó una endoprótesis vascular dentro de la prótesis de Dacron existente, y se cubrió el punto de fuga de la fístula. La ASD de comprobación en el quirófano mostró ausencia de fugas. Al paciente se le da de alta a los 5 días de la operación, sin complicaciones, tratamiento antiagregante. En el control a los 2 años el paciente persiste clínicamente asintomático, y no se visualizan complicaciones en las TC de control. Conclusiones. Las FAB que se presentan a modo de hemoptisis graves son un proceso de evolución tórpida y fatal en muchos casos, de difícil manejo terapéutico, especialmente en aquellos casos con cirugía previa. El abordaje endovascular es una alternativa útil en estos casos, y disminuye la morbimortalidad de la cirugía abierta convencional. [ANGIOLOGÍA 2003; 55: 534-41]

Palabras clave. Aneurisma de aorta torácica. Endovascular. Fístula aortobronquial. Hemoptisis. Pseudoaneurisma. Stent recubierto.

ressonância e angiografia de subtração digital (ASD). O doente foi submetido a reparação endovascular mediante uma abordagem ilíaca, devido ao alto risco de uma reparação convencional, com colocação de uma prótese revestida dentro da prótese de Dacron existente, e cobertura do ponto de fuga da fístula. A ASD de comprovação no bloco operatório mostra a ausência de fugas. Ao doente é dada alta ao quinto dia de pós-operatório, sem complicações, com tratamento antiagregante. No controle aos 2 anos, o doente continua clinicamente assintomático e não se visualizam complicações nas TC de controle. Conclusões. As FAB que se apresentam como hemoptises graves são um processo de evolução desfavorável e fatal em muitos casos, de difícil abordagem terapêutica, especialmente naqueles casos com cirurgia prévia. A abordagem endovascular é uma alternativa útil nestes casos e reduz a morbidade e mortalidade da cirurgia aberta convencional. [ANGIOLOGÍA 2003; 55: 534-41]

Palavras chave. Aneurisma da aorta torácica. Endovascular. Fístula aerobrônquica. Hemoptise. Prótese revestida. Pseudo-aneurisma.