

Fístula aortoduodenal primaria: descripción de un caso y revisión de la bibliografía

E.M. San Norberto-García, S. Carrera-Díaz, N. Cenizo-Revuelta,
J.A. Brizuela-Sanz, L. Mengíbar-Fuentes, R. Salvador, M.A. Ibáñez-Maraña,
V.M. Gutiérrez-Alonso, J.A. González-Fajardo, M.L. del Río-Solá,
I. del Blanco-Alonso, C. Vaquero-Puerta

FÍSTULA AORTODUODENAL PRIMARIA: DESCRIPCIÓN DE UN CASO Y REVISIÓN DE LA BIBLIOGRAFÍA

Resumen. Introducción. La fístula aortoentérica primaria es una excepcional, pero devastadora, etiología de sangrado digestivo. El ser portador de un aneurisma de aorta abdominal constituye el mayor factor de riesgo. La tríada clásica es hemorragia digestiva alta, dolor abdominal y masa abdominal pulsátil. La prueba diagnóstica con más utilidad es la tomografía computarizada con contraste intravenoso, a pesar de que la endoscopia se indica en los casos con sangrado digestivo. El tratamiento quirúrgico con injerto sintético in situ es la técnica de elección en casos sin elevado nivel de contaminación. La reparación endovascular es una alternativa factible en pacientes seleccionados. Caso clínico. Presentamos un caso de fístula aortoentérica primaria en el que se sospechó ruptura inminente de un aneurisma de aorta abdominal con su hallazgo intraoperatorio. Describimos las características etiológicas y clínicas, además de discutir el algoritmo diagnóstico actual y el papel de las nuevas técnicas endovasculares en su tratamiento. [ANGIOLOGÍA 2007; 59: 445-9]

Palabras clave. Aneurisma de aorta abdominal. Duodeno. Fístula intestinal. Fístula vascular. Tratamiento endovascular.

Introducción

Las fístulas aortoentéricas (FAE) pueden clasificarse en dos grupos: primarias y secundarias. En las primarias se comunica el tracto digestivo con la aorta en casos sin intervención quirúrgica vascular previa. La etiología actual más frecuente es la aterosclerosis como causante del desarrollo de aneurismas de aorta abdominal (AAA) [1], aunque también se deben a infecciones, tumores, necrosis quística de la media, proce-

sos inflamatorios como apendicitis o diverticulitis, úlceras pépticas, radioterapia o ingestión de cuerpos extraños [2-5]. La incidencia obtenida en series de autopsias se sitúa entre el 0,04 y el 0,07% [6,7].

Las FAE secundarias ocurren como resultado de una cirugía aórtica previa con implantación de prótesis sintéticas, indicadas en la mayoría de los casos para la reparación de un AAA. La conexión se localiza en el lugar donde la línea de sutura aórtica proximal y el intestino adyacente se encuentran en íntimo contacto. Su incidencia se sitúa entre el 0,5 y el 2%.

Presentamos el caso de un varón de 83 años con una historia de un AAA de gran tamaño (8,5 cm), con cuadro clínico de dolor abdominal, estreñimiento y fiebre, al que se encontró la FAE intraoperatoriamente. Tener en cuenta esta entidad en los casos en que la tomografía computarizada (TC) muestre un

Aceptado tras revisión externa: 17.09.07.

Servicio de Angiología y Cirugía Vascular. Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Valladolid, España.

Correspondencia: Dr. Enrique M. San Norberto García. Servicio de Angiología y Cirugía Vascular. Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Ramón y Cajal, 3. E-47005 Valladolid. E-mail: esannorberto@hotmail.com

© 2007, ANGIOLOGÍA

AAA en contacto cercano con la pared duodenal evitará desagradables sorpresas durante su reparación e incluso ayudará en la decisión de la técnica quirúrgica a emplear, abierta o endovascular.

Caso clínico

Varón de 83 años que acude al Servicio de Urgencias por dolor abdominal, estreñimiento y fiebre de 38 °C de cuatro días de evolución. En la exploración física destaca únicamente un hiperlatido abdominal. En el hemograma se obtienen 13.900 leucocitos/ μ L, con un 92,7% de neutrófilos y en el sistemático de orina leucocitos aislados y de 16-20 hematíes por campo como únicos hallazgos significativos. El estudio ecográfico demuestra un gran AAA infrarrenal de 8,3 cm de diámetro con trombo mural excéntrico. La TC con contraste intravenoso aprecia que no existe rotura en cavidad abdominal, aunque se observan algunas imágenes aisladas lineales de alta densidad en el trombo que pudieran estar en relación con su figuración. El calibre máximo de la aorta es de 8,5 cm. El asa duodenal está íntimamente adherida a su pared anterior (Fig. 1).

Es intervenido transcurridos dos días de manera programada preferente; hasta entonces el paciente permaneció hemodinámicamente estable y sin fiebre. La arteriografía intraoperatoria muestra una grave ateromatosis iliaca y la trombosis de la arteria mesentérica inferior en su origen. Durante la intervención se observa la adherencia de la tercera porción del duodeno al aneurisma, que revela posteriormente la existencia de un orificio de 10 x 15 mm que se corresponde con una fístula aortoduodenal (FAD) obliterada por material trombótico aórtico (Fig. 2). Se procede a la resección del aneurisma e injerto *in situ* con una prótesis aortobifemoral de dacron de 20 x 10 mm (Hemashield gold[®], Boston Scientific Medi-tech, Wayne, EE. UU.).

Tras cuatro días en la Unidad de Reanimación, donde sufre una insuficiencia renal leve (creatinina,



Figura 1. Tomografía computarizada con contraste intravenoso de la aorta abdominal infrarrenal, que muestra un aneurisma de aorta abdominal infrarrenal de 8,5 cm de diámetro máximo. Tercera porción del duodeno, íntimamente adherida a su pared anterior. Quiste renal derecho.

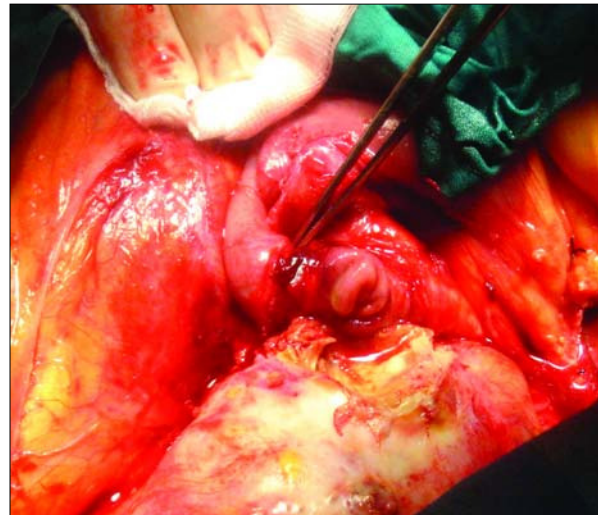


Figura 2. Hallazgo intraoperatorio de la tercera porción del duodeno adherida a la pared aórtica. Material trombótico protuyendo a través de la pared aneurismática y mucosa intestinal visualizada en el trayecto de la fístula aortoduodenal.

1,4 mg/dL; urea, 68 mg/dL), el paciente pasa a la sala de hospitalización. En el postoperatorio requiere la instauración de nutrición parenteral y desarrolla un cuadro de vómitos y diarrea, con diagnóstico de colelitiasis y colitis isquémica leve e inespecífica tras estudio endoscópico. El análisis microbiológico del

trombo aneurismático observa crecimiento de *Enterobacter cloacae*. Tras 35 días de ingreso, el paciente obtiene el alta hospitalaria.

Discusión

Los casos publicados en la bibliografía de FAE primaria son escasos; hasta 2004 se habían recogido 332 casos [1,8-10] y se calcula una incidencia en la población de 0,007 casos por millón al año [11].

Las teorías propuestas para la formación de una FAE primaria son la invasión directa y la destrucción inflamatoria con etiología por infección, cuerpos extraños o erosión [12]. El sitio característico de su formación es la porción retroperitoneal del duodeno distal justo anterior a la aorta, que afecta en dos de cada tres partes a la tercera porción duodenal y en la restante a la cuarta. La siguiente localización anatómica del tracto gastrointestinal más frecuentemente afectada es el esófago, seguida del intestino delgado, el grueso y el estómago [10].

La tríada clínica característica de esta patología es la unión de hemorragia gastrointestinal alta, dolor abdominal y masa abdominal pulsátil, pero su aparición alcanza al 11% de los casos [10]. Los signos y síntomas que definen esta entidad son: sangrado gastrointestinal, hematemesis, hematoquecia, melena, dolor abdominal o dorsal, *shock* y síncope, masa abdominal pulsátil, soplo abdominal, fiebre o sepsis. Una historia de sangrado intermitente es habitual, motivada por el cierre temporal de la fístula por el trombo y por el intestino estimulado para contraerse alrededor del trayecto fistuloso, aunque su evolución natural es desembocar en un sangrado masivo y *shock* hipovolémico.

Las pruebas diagnósticas básicas, como el hemograma, pueden mostrar una disminución de la hemoglobina y el hematocrito conjuntamente con una elevación de los leucocitos. La radiología simple de abdomen nos permitirá solamente observar en determinados casos una pared aórtica calcificada como

signo de AAA. Estas pruebas totalmente inespecíficas resultan de ayuda en el diagnóstico diferencial de otras patologías intraabdominales, teniendo en cuenta que *a priori* la probabilidad de que un paciente con una hemorragia gastrointestinal se deba a una FAE es de 1 de cada 500 [9].

Multitud de pruebas de imagen se han empleado en el diagnóstico de esta patología, incluyendo casos en que el diagnóstico se ha obtenido como último recurso mediante la laparotomía exploradora. Pruebas como la ultrasonografía o los estudios gastrointestinales con contraste no han demostrado poseer utilidad [8]. El abordaje habitual de un sangrado gastrointestinal en un paciente estable es la gastroduodenoscopia. Las imágenes sugestivas de FAE primaria son el hallazgo de un sangrado activo, un coágulo adherente, la combinación de úlcera y estómago repleto de sangre y la erosión con una masa pulsátil excéntrica protuyendo a través del duodeno [13]. La sensibilidad de esta prueba solamente alcanza el 25% [10], aunque es extremadamente útil para excluir otras causas [13]. La arteriografía, como método para demostrar la extravasación de contraste dentro del intestino, obtiene semejantes resultados, ya que diagnostica solamente a un cuarto de los pacientes [8], pero puede ser útil para definir la anatomía arterial durante la planificación de una reconstrucción aórtica. La TC es la prueba más rentable, con un éxito diagnóstico del 60% [10]. Son hallazgos sugestivos de FAE primaria: aire en la pared aórtica o en el retroperitoneo, adelgazamiento focal de la pared intestinal, discontinuidad de la cubierta grasa aórtica y contraste en la proximidad o dentro del tracto gastrointestinal [14].

Existe, todavía en la actualidad, controversia acerca de cuál debe ser la prueba diagnóstica inicial. Hace unos años, se proponía la gastroduodenoscopia como la prueba preferida, pero actualmente, con las mejoras aplicadas a la TC en cuanto a la rapidez de obtención, la elevada resolución y calidad de las imágenes, así como su amplia disponibilidad, la han convertido en la prueba diagnóstica inicial [11]. Además, no po-

see el teórico peligro de la gastro-duodenoscopia o la arteriografía de afectar al trombo adherido a la fístula y motivar un sangrado activo. La TC con empleo de contraste intravenoso se considera actualmente la prueba de elección en el diagnóstico de la FAE primaria (Fig. 3).

Las técnicas quirúrgicas terapéuticas descritas abarcan el cierre exclusivo del defecto, la aneurismorrafía, el *bypass* extraanatómico, el injerto sintético *in situ* y el injerto impregnado en antibióticos reforzados con epiploplastia pediculada, la implantación de una endoprótesis vascular, y la embolización con

coils [15]. La recomendación de realizar derivaciones extraanatómicas en estos casos, basada en la presunción que se puede exponer el material implantado a la contaminación duodenal, no se justifica con la evidencia recogida en la bibliografía, quedando reservadas estas técnicas para las FAD secundarias. El tratamiento del intestino es el cierre primario y en casos en que no sea técnica factible, una resección local. La mortalidad ha disminuido en las últimas décadas, desde el 56% en los años 70 [16] al 34% en la actualidad [10], aunque los casos con hemorragia gastrointestinal activa es cercana al 100% [8].

Las técnicas endovasculares han irrumpido en los últimos años en el tratamiento de esta patología con unos resultados prometedores, principalmente en el grupo de pacientes inestables o contraindicados para la cirugía convencional, ofreciendo una alternativa menos invasiva que la cirugía abierta para sellar la fístula y controlar el sangrado [17,18]. El empleo de dispositivos endovasculares aórticos o incluso su combinación con embolizantes como el n-butil-2-cianoacrilato se han descrito como técnicas con resultados óptimos [18-21]. Se pueden llegar a emplear como un puente con el que conseguir el estado

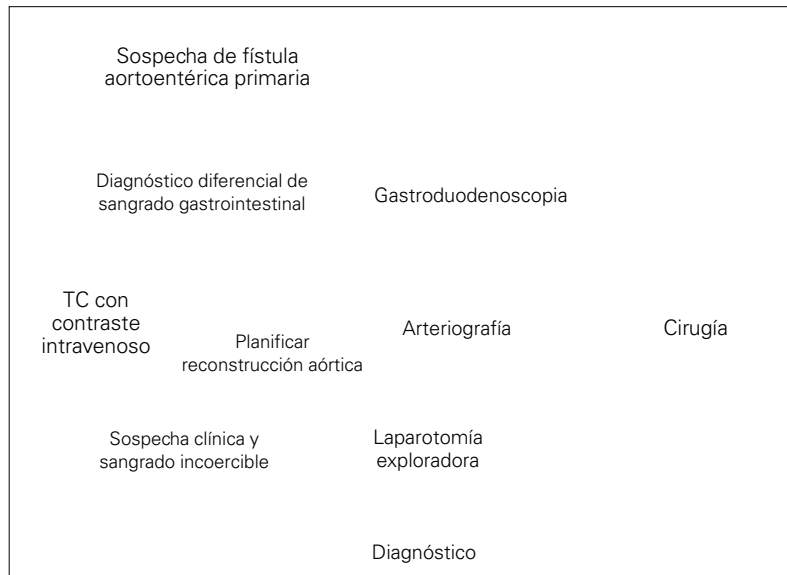


Figura 3. Algoritmo diagnóstico actual de las fístulas aortoentéricas primarias.

clínico óptimo del paciente antes de enfrentarse a una cirugía abierta definitiva o como tratamiento final. No se han publicado durante su seguimiento complicaciones infecciosas, como bacteriemias o pseudoaneurismas, y se ha logrado una relativa corta estancia hospitalaria [18,19].

Un limitado número de publicaciones han incluido los estudios microbiológicos realizados en el aneurisma, el material trombotico o el mismo trayecto fistuloso. Los microorganismos más comúnmente encontrados son *Salmonella* y *Klebsiella*, aunque también se han recogido *E. coli*, *E. faecalis*, *Lactobacillus*, *C. septicum* y *M. tuberculosis* [23].

El tratamiento antibiótico debe instaurarse nada más sospechar esta entidad, en un primer momento de forma empírica contra grampositivos y negativos y luego guiados por antibiograma del material histológico obtenido. Su duración debe abarcar una semana si los cultivos son negativos y de 4 a 6 si son positivos [8,11,22]; en caso de indicios de infección continuada (aumento mantenido de leucocitos, proteína C reactiva, o colecciones periprotésicas) o haberse realizado técnicas endovasculares [18], se debe proseguir durante mayor tiempo o incluso de por vida.

Bibliografía

1. Reckless JP. Aortoenteric fistulae: an uncommon complication of abdominal aortic aneurysms. *Br J Surg* 1972; 59: 458-60.
2. Odze RD, Bégin LR. Peptic ulcer induced aortoenteric fistula. Report of a case and review of the literature. *J Clin Gastroenterol* 1991; 13: 682-6.
3. Armitage NC, Ballantyne KC. Primary aortoenteric fistula due to recurrent colorectal cancer: report of a case. *Dis Colon Rectum* 1990; 33: 148-9.
4. Estrada FP, Tachovski TJ, Orr RM Jr, Boylan JJ, Kram BW. Primary aortoduodenal fistula following radiotherapy. *Surg Gynecol Obstet* 1983; 156: 646-50.
5. Caes F, Vierendeels T, Weich W, Willems G. Aortocolic fistula caused by an ingested chicken bone. *Surgery* 1988; 103: 481-3.
6. Kane JM, Myers KA, Kozoll DD. An anatomical approach to the problem of massive gastrointestinal hemorrhage. *Arch Surg* 1955; 70: 570.
7. Hirst AE, Affeldt JE. Abdominal aortic aneurysm with rupture into the duodenum: a report of eight cases. *Gastroenterology* 1971; 17: 504.
8. Sweeney MS, Gadacz TR. Primary aortoduodenal fistula: manifestations, diagnosis and treatment. *Surgery* 1984; 96: 492-7.
9. Voorhoeve R, Moll FL, De Letter JA, Bast TJ, Wester JP, Sleen PH. Primary aortoenteric fistula: report of eight new cases and review of the literature. *Ann Vasc Surg* 1996; 10: 40-8.
10. Saers SJ, Scheltinga MR. Primary aortoenteric fistula. *Br J Surg* 2005; 92: 143-52.
11. Duncan JR, Renwick AA, Mackenzie I, Gilmour DG. Primary aortoenteric fistula: pitfalls in the diagnosis of a rare condition. *Ann Vasc Surg* 2002; 16: 242-5.
12. Lemos DW, Raffetto JD, Moore C, Menzoian JO. Primary aortoduodenal fistula: a case report and review of the literature. *J Vasc Surg* 2003; 37: 686-9.
13. Delgado J, Jotkowitz AB, Delgado B, Makarov V, Mizrahi S, Szendro G. Primary aortoduodenal fistula: pitfalls and success in the endoscopic diagnosis. *Eur J Intern Med* 2005; 16: 363-5.
14. Lee JT, Saroyan RM, Belzberg G, Pianim NA, Bongard FS. Primary aortoenteric fistula: computed tomographic diagnosis of an atypical presentation. *Ann Vasc Surg* 2001; 15: 251-4.
15. Montgomery RS, Wilson SE. Surgical management of aortoenteric fistulas. *Surg Clin North Am* 1996; 76: 1148-57.
16. Evans MD, Webster JHH. Spontaneous aortoduodenal fistula. *Br J Surg* 1972; 59: 368-72.
17. Eskandari MK, Makaroun MS, Abu-Elmagd KM, Billiar TR. Endovascular repair of an aortoduodenal fistula. *J Endovasc Ther* 2000; 7: 328-32.
18. Burks JA Jr, Faries PL, Gravereaux EC, Hollier LH, Marin ML. Endovascular repair of bleeding aortoenteric fistulas: a 5-year experience. *J Vasc Surg* 2001; 34: 1055-9.
19. Baril DT, Carroccio A, Ellozy SH, Palchik E, Sachdev U, Jacobs TS, et al. Evolving strategies for the treatment of aortoenteric fistulas. *J Vasc Surg* 2006; 44: 250-7.
20. Verhey P, Best A, Lakin P, Nachiondo J, Petersen B. Successful endovascular treatment of aortoenteric fistula secondary to eroding duodenal stent. *J Vasc Interv Radiol* 2006; 17: 1345-8.
21. Finch L, Heathcock RB, Quigley T, Jiranek G, Robinson D. Emergent treatment of a primary aortoenteric fistula with N-butyl-2-cyanoacrylate and endovascular stent. *J Vasc Interv Radiol* 2002; 13: 841-3.
22. Taren AH, Schroeder TV. Primary aortoenteric fistula: two new case reports and a review of 44 previously reported cases. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 1996; 12: 5-10.
23. Antinori CH, Andrew CT, Santaspirt JS, Villanueva DT, Kuchler JA, DeLeon ML, et al. The many faces of aortoenteric fistulas. *Am Surg* 1996; 62: 344-9.

PRIMARY AORTODUODENAL FISTULA: A CASE REPORT AND REVIEW OF THE LITERATURE

Summary. Introduction. *Aortoenteric fistula is a rare but devastating cause of gastrointestinal bleeding. The traditional clinical triad is upper gastrointestinal bleeding, abdominal pain and pulsatile abdominal mass. The computed tomographic scan with iodinated contrast is the most suitable diagnostic test although endoscopy is considered in all patients with massive gastrointestinal bleeding. In-situ aortic reconstruction is the approach of choice in cases without extensive local level of contamination. The endovascular repair is a feasible alternative to traditional surgical treatment in select patients.* Case report. *We present a case of primary aortoenteric fistula with intraoperative diagnosis in which preoperative suspect was ruptured of abdominal aortic aneurysm. We describe etiological and clinical features and discuss the update diagnostic tools and the role of new endovascular management.* [ANGIOLOGÍA 2007; 59: 445-9]

Key words. *Abdominal aortic aneurysm. Duodenum. Endoluminal repair. Intestinal fistula. Vascular fistula.*