

Caso Clínico

Estenosis de vena pulmonar secundaria a corrección quirúrgica de insuficiencia mitral y tricúspide por comunicación interauricular residual: reporte de caso



Javier Maldonado Escalante^a, German Molina^a, Francisco M. Rincón^a, Julian M. Corso-Ramirez^b y Carlos J. Pérez Rivera^{b,c,*}

^a Departamento de cirugía Cardiovascular, Clínica Universitaria Colombia, Bogotá, Colombia

^b Grupo de investigación Cirugía Cardiovascular, Clínica Universitaria Colombia, Bogotá, Colombia

^c Epidemiología, Clínica Universitaria Colombia, Bogotá, Colombia

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 27 de mayo de 2021

Aceptado el 9 de agosto de 2021

On-line el 16 de noviembre de 2021

Palabras clave:

Estenosis vena pulmonar
Comunicación interauricular
Insuficiencia mitral
Cierre percutáneo de comunicación interauricular
Complicación

Keywords:

Pulmonary vein stenosis
Atrial septal defect
Mitral insufficiency
Atrial septal defect closure
Complication

R E S U M E N

El uso de catéter percutáneo para la implantación de dispositivo es una de las técnicas más eficaces en la actualidad para el cierre de comunicación interauricular. En ocasiones puede presentarse mal posicionamiento o causar lesiones a estructuras adyacentes. Por otro lado, se han descrito varias causas de estenosis de vena pulmonar, una de ellas la iatrogenia durante procedimientos quirúrgicos cardíacos. Presentamos el caso de una paciente mujer de 41 años con antecedente de cierre de comunicación interauricular, quien presentó síntomas de dolor torácico tipo punzada, palpitaciones y deterioro de la clase funcional. Al examen físico estaba sin deterioro hemodinámico, con hallazgo de soplo sistólico en foco pulmonar. Por antecedente se realizó ecocardiograma, identificándose insuficiencia mitral severa, tricúspide moderada y comunicación interauricular residual 11 años después del cierre del defecto. Se realizó cirugía para el cierre de la comunicación residual y plastia mitral y tricúspide, sin embargo, durante el postoperatorio presentó estenosis de la vena pulmonar derecha, por lo cual fue nuevamente intervenida para la liberación de venas pulmonares con adecuada evolución clínica a un año del seguimiento.

© 2021 Sociedad Española de Cirugía Cardiovascular y Endovascular. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Pulmonary Vein Stenosis Secondary to Surgical Correction of Mitral and Tricuspid Insufficiency due to Residual Atrial Septal Defect: Case Report

A B S T R A C T

The use of a percutaneous catheter for device implantation is currently one of the most effective techniques for atrial septal defect closure. Occasionally, it may be poorly positioned or cause lesions to adjacent structures. Furthermore, several causes of pulmonary vein stenosis have been described, one of which being iatrogenic during cardiac surgical procedures. We present the case of a 41-year-old female patient with a history of atrial septal defect closure who presented with symptoms of stabbing chest pain, palpitations and functional class impairment.

Physical examination showed no haemodynamic deterioration with systolic murmur in the pulmonary focus. Echocardiogram was performed identifying severe mitral regurgitation, moderate tricuspid regurgitation and residual atrial septal defect 11 years after defect closure. Surgery was performed to close the residual communication and mitral and tricuspid plasty. However, during the postoperative period the patient presented stenosis of the right pulmonary vein and was operated again to free the pulmonary veins with adequate clinical evolution at one year of follow-up.

© 2021 Sociedad Española de Cirugía Cardiovascular y Endovascular. Published by Elsevier España, S.L.U. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

La comunicación interauricular (CIA) es la causa más frecuente de malformaciones congénitas en adultos, presenta alta morbilidad y les confiere menor expectativa de vida a los pacientes no tratados oportunamente¹. Representa el 7% de todas las enfermedades cardíacas congénitas. En caso de no tratarse puede llevar a fallo

Abreviaturas: CIA, comunicación interauricular; ETE, ecocardiograma transesofágico; EVP, estenosis vena pulmonar; FA, fibrilación auricular; RMN, resonancia magnética nuclear; TAC, tomografía axial computarizada.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: cjperezrivera@gmail.com (C.J. Pérez Rivera).

cardíaco derecho, arritmias e hipertensión pulmonar. Este defecto ha sido tratado por medio del cierre con catéter percutáneo durante años, mostrando resultados favorables en toda la población. El uso de esta técnica requiere estudios previos y una visualización anatómica exacta que permita determinar el tamaño adecuado del defecto para seleccionar el dispositivo correcto y la vía de abordaje². La insuficiencia mitral puede ser observada en el 10% de pacientes con CIA y su cierre provee una mejora de la insuficiencia³.

La estenosis de la vena pulmonar (EVP) consiste en la reducción de la luz en una o más venas pulmonares⁴. El rango de estenosis puede variar de moderado a severo⁵. Se consideran 3 causas adquiridas principalmente: infiltración neoplásica, infiltración no neoplásica con compresión extrínseca y la iatrogénica; como sucede en procedimientos quirúrgicos o percutáneos (ablación por radiofrecuencia durante cirugías de arritmia, comúnmente para la fibrilación auricular [FA])^{4,6}. En presencia de cambios hemodinámicos significativos por incremento de la presión capilar lobular se presenta dificultad respiratoria, dolor torácico, tos o hemoptisis⁴. La EVP es relativamente infrecuente y se asocia con alta morbilidad si no es identificada y tratada de forma temprana³. Los síntomas pueden ser variados, desviando la atención hacia otras condiciones de origen respiratorio o cardíaco⁵.

Presentamos el caso de una paciente con antecedente de cierre de CIA, quien 11 años después de la intervención presenta deterioro de la clase funcional debido a insuficiencia mitral severa y tricúspide moderada, además de CIA residual por mal posicionamiento del dispositivo. Es intervenida para la corrección del defecto, posterior a lo cual, durante el posoperatorio, se identifica EVP superior derecha, siendo nuevamente intervenida para ampliación de la desembocadura de las venas pulmonares derechas con éxito. Este caso y su resultado final demuestran la necesidad de un trabajo multidisciplinario, un seguimiento estricto y la consideración del abordaje quirúrgico en estos casos. Este reporte de caso fue escrito bajo los criterios SCARE⁷.

Presentación del caso

Paciente mujer de 41 años, con antecedente de CIA corregida por medio de cierre percutáneo con dispositivo AmplatzerTM en 2008. Presentó 11 años después deterioro de la clase funcional (NYHA II), documentándose insuficiencia mitral severa y tricúspide moderada, además de una CIA residual por malposición del dispositivo. Fue llevada a cirugía para plastia de válvula mitral, plastia de válvula tricúspide y cierre de CIA residual. Bajo esternotomía media se practicó canulación central de aorta ascendente y doble cava; circulación extracorpórea, pinzamiento aórtico y parada cardíaca. Por medio de surco de Sondergaard auriculoventricular se realiza auriculotomía izquierda.

Intraoperatoriamente se halló el dispositivo AmplatzerTM sin adecuada epitelización y no fijado al borde superior del septo interauricular, dejando un cortocircuito residual de aproximadamente 1 × 2 centímetros, con compromiso inflamatorio de las estructuras vecinas y adherencias del dispositivo a la valva septal de la tricúspide (fig. 1).

Al nivel de la válvula mitral se encontró retracción de la comisura posteromedial y adherencias firmes por el desplazamiento del dispositivo AmplatzerTM. Se visualizó engrosamiento de la valva anterior y desinserción parcial de la valva al anillo sobre el nivel de A2. El abordaje de la válvula mitral fue complejo por las adherencias descritas, requiriendo visualización tanto por vía transeptal como por auriculotomía izquierda (dissección del surco interauricular/Sondergaard Waterston).

Se extrajo el dispositivo AmplatzerTM liberando las adherencias de este, tanto a los bordes del defecto como a la válvula tricúspide y mitral, dejando una CIA de 3 × 3 cm, la cual se cerró con parche de

pericardio autólogo y sutura monofilamento. Luego de liberar las estructuras de la valva mitral y tricúspide al dispositivo se completó la plastia mitral con un anillo rígido completo Physio II 28 Edwards, y con los puntos de sutura para fijación del anillo se reinsertó el segmento A2 al anillo mitral. La plastia tricúspide consistió en la liberación de las adherencias que fijaban la valva septal a la pared auricular y remodelación de la cicatriz sobre la superficie auricular de la valva septal.

En el periodo postoperatorio presenta signos de fallo cardíaco, con adecuada respuesta inicial al tratamiento. El ecocardiograma de control postoperatorio evidenció derrame pericárdico de grado leve sin repercusión hemodinámica. Adicionalmente, presentó derrame pleural derecho, con salida de líquido serohemático al drenaje percutáneo. Fue dado de alta una semana después de la intervención quirúrgica. Cuatro días posteriores al egreso consultó al servicio de urgencias por dolor torácico de un día de evolución tipo punzada en el hemitórax izquierdo, sin hallazgos electrocardiográficos ni biomarcadores cardíacos elevados. En esta ocasión el ecocardiograma transtorácico evidenció insuficiencia tricúspide moderada, alta probabilidad de hipertensión pulmonar, derrame pericárdico moderado y flujo turbulento proveniente de la vena pulmonar superior derecha, compatible con estenosis.

El ecocardiograma transesofágico (ETE) sugirió estenosis del ostium de la vena pulmonar superior derecha por posible secuela posquirúrgica. El hallazgo fue confirmado con angiotomografía y reconstrucción tridimensional, documentándose EVP superior derecha (fig. 2). Fue programada una segunda intervención para la reconstrucción de la vena pulmonar. Los hallazgos intraoperatorios, mediante reesternotomía, canulación central de aorta ascendente y doble cava bajo circulación extracorpórea consistieron en estenosis de la vena pulmonar superior derecha en su desembocadura en la aurícula izquierda, por el cierre de la atriotomía previa con sutura de polipropileno.

Se realizó liberación, identificación de las venas pulmonares e implante de parche de pericardio ampliando la desembocadura y permitiendo un drenaje adecuado. En la auriculotomía derecha se evidenció insuficiencia tricúspide que fue reparada bajo la técnica de bicuspización. Su evolución postoperatoria fue adecuada, los ecocardiogramas de control postoperatorios enfocados en los hallazgos quirúrgicos mostraban drenaje de las venas pulmonares con adecuado flujo color y curva del Doppler pulsado. Durante el seguimiento a un año la paciente presenta evolución adecuada sin síntomas o signos de fallo cardíaco.

Discusión

La causa más frecuente de los defectos septales corresponde a la sobrecarga de volumen crónica de las cámaras derechas^{2,8}. El uso de catéteres para el tratamiento de defectos atriales septales se considera como una estrategia terapéutica óptima. Es un método menos invasivo y mejora los síntomas y calidad de vida al favorecer el cierre del *shunt* izquierdo/derecho. En adultos se presentan palpitaciones, arritmias o fallo cardíaco progresivo⁹.

El uso de dispositivos como el AmplatzerTM provee un método adecuado para todos los subtipos de defectos septales atriales y es ampliamente usado en la actualidad. No obstante, pueden presentarse dificultades anatómicas y hemodinámicas para realizar un correcto procedimiento. Para la selección del dispositivo se requiere una evaluación exhaustiva con el fin de determinar el diámetro máximo del defecto auricular y la dimensión de los bordes circundantes^{9,10}.

La insuficiencia mitral asociada a esta condición puede mejorar posterior al cierre del defecto septal. Sin embargo, en algunos casos puede llevar a fallo cardíaco, arritmia auricular y/o empeoramiento de la insuficiencia mitral preexistente o *de novo* después

ATRIO DERECHO

Abierto en Bypass Total

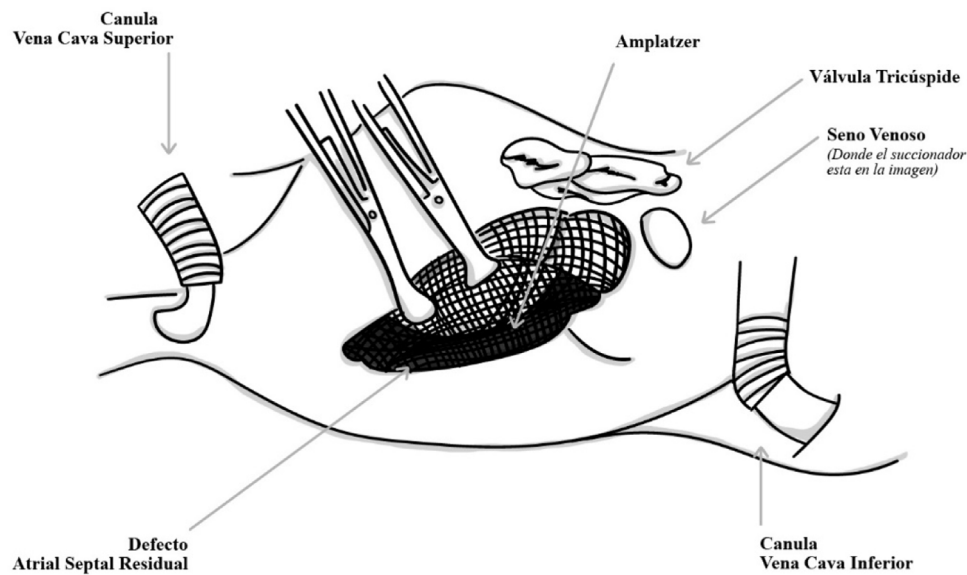


Figura 1. Hallazgos quirúrgicos en la aurícula derecha. Se demuestra la presencia de Amplatzer™ mal posicionado con comunicación interauricular residual y tejido inflamatorio sobre estructuras adyacentes.

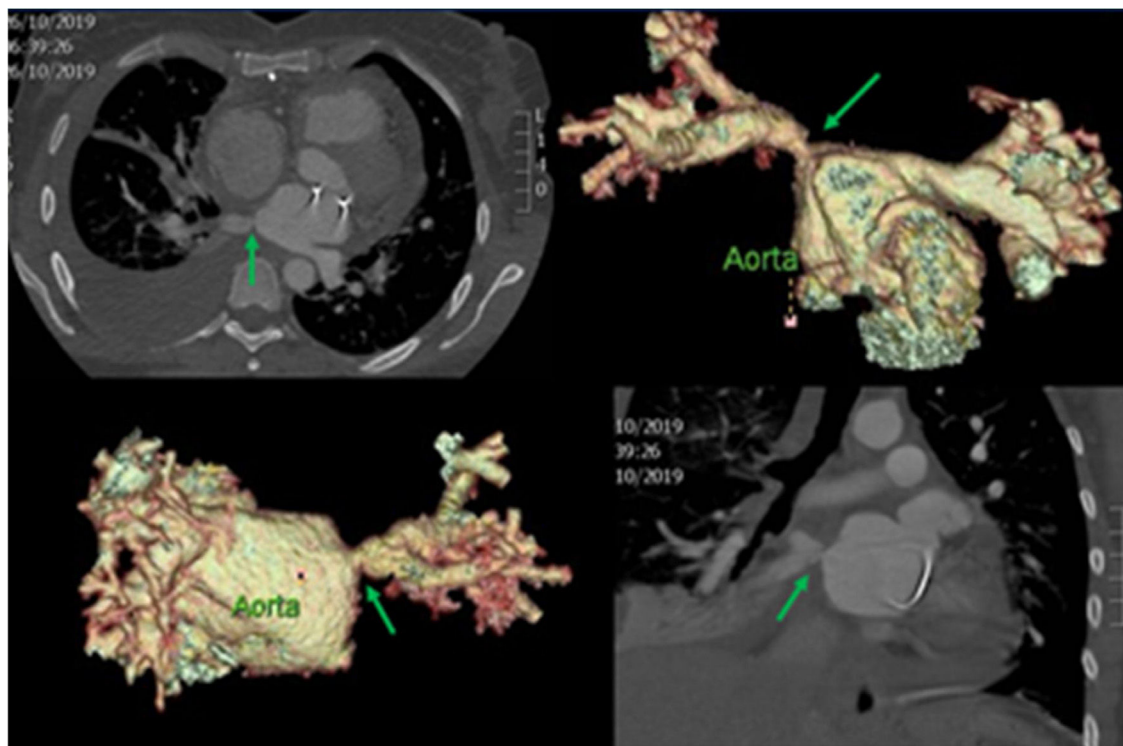


Figura 2. Imágenes tomográficas con reconstrucción tridimensional donde se observa estenosis de venas pulmonares derechas (flecha verde).

del cierre. El cortocircuito auricular promueve un aumento de volumen en las cámaras derechas y con el tiempo una disminución en la *compliance* ventricular izquierda con subsecuente compromiso de ambos ventrículos^{8,10}. En este sentido algunos pacientes sometidos a cierre interauricular pueden mejorar, y en otros casos generar o agravar la insuficiencia mitral después del cierre septal.

En el caso presentado se documenta insuficiencia mitral severa 11 años después del cierre percutáneo de CIA. La fisiopatología de esta complicación no está clara; podría estar relacionada con el cambio geométrico del ventrículo derecho después del cierre de la comunicación interauricular o con las dificultades técnicas al implantar el Amplatzer™, tales como bordes insuficientes para el adecuado anclaje o una elección errónea del tamaño. Posterior a



Figura 3. Descripción de las 2 variantes anatómicas más frecuentes reportadas en la literatura.

la primera intervención quirúrgica para la corrección del defecto la paciente presenta síntomas de dolor torácico tipo punzada en el hemitórax izquierdo, disnea marcada y derrame pleural derecho que requirió drenaje percutáneo. Esta manifestación se relaciona con el aumento de la presión hidrostática ante la obstrucción del drenaje venoso pulmonar derecho.

Las venas pulmonares usualmente drenan en 4 orificios separados. Sin embargo, se han descrito numerosas variantes en la conformación anatómica. La identificación adecuada de las variantes es un reto importante para los radiólogos y médicos. La primera variante más frecuente se caracteriza por poseer 2 ostium separados hacia la izquierda, uno a nivel superior, que drena el lóbulo superior izquierdo, y uno inferior drenando el lóbulo inferior izquierdo; la segunda variante posee 2 ostium separados a la derecha, un ostium superior que drena el superior y medio derecho y otro ostium hacia abajo que se encarga de drenar el lóbulo inferior derecho⁶ (fig. 3).

La EVP se asocia con intervenciones quirúrgicas y percutáneas que conllevan aumento de la presión poscapilar y con el tiempo puede generar hipertensión pulmonar¹⁰. Es una entidad rara con una incidencia aproximada de 2-3 casos por año en grandes centros y una alta morbilidad, especialmente en edades avanzadas^{4,11}. Se han establecido varias causas para esta condición. Puede aparecer de forma congénita y constituye el 0,4% de las enfermedades cardíacas congénitas por una conexión fallida de las venas pulmonares comunes sobre la aurícula izquierda^{4,11}.

Así mismo, puede ser adquirida a través de procesos mediastinales por compresión extrínseca de la vena pulmonar en pacientes con cáncer de pulmón, linfoma, mediastinitis fibrosante o sarcoidosis, entre otras. Las causas por iatrogenia son frecuentes. La ablación por radiofrecuencia para el tratamiento de FA es la causa más frecuente y posee una incidencia aproximada 2-3,1%⁶. No se conocen claramente los riesgos de progresión. El rango de estenosis puede variar de moderado (oclusión < 50%) a severo con estenosis venosa completa⁵. Los síntomas más frecuentes son disnea, tos, dolor torácico, hemoptisis e infarto pulmonar^{11,12}.

En este caso se realizó una evaluación y diagnóstico temprano por medio de síntomas sugestivos, ETE y angiotomografía que permitieron confirmar estenosis del ostium de la vena pulmonar superior derecha. El uso de ETE es una herramienta con alta precisión para identificar EVP después de procedimientos donde se presenta aislamiento de vena pulmonar, como en la ablación para FA, con una sensibilidad del 82-100% y especificidad del 95% a 100% comparado con otros métodos como la tomografía axial computarizada, angiografía o resonancia magnética nuclear. Es asequible, no hay exposición a radiación, tiene un bajo costo de operación y se puede emplear en pacientes con dispositivos ferromagnéticos, frecuentes en múltiples condiciones cardíacas^{12,13}.

El uso de la tomografía axial computarizada puede ser efectivo cuando se sospechen procesos en el mediastino que causen compresión extrínseca de las venas pulmonares, permitiendo también la caracterización del grado de estenosis venosa. Otros métodos diagnósticos que pueden ser efectivos son la resonancia magnética

nuclear o imagen por perfusión. La decisión de emplearlos depende de las condiciones del paciente, experiencia del operador y disponibilidad en el centro hospitalario.

El hallazgo durante reconstrucción de EVP nos explica la causa de la lesión sobre la vena pulmonar que corresponde a lesión iatrogénica en el momento de cerrar la auriculotomía izquierda (para el abordaje de la válvula mitral por el surco interauricular), cuyo error consistió en realizar una disección no completa del surco interauricular y orientar la incisión de la aurícula izquierda hacia las venas pulmonares y no hacia el techo de la aurícula izquierda (como sucede en el trasplante cardíaco), así mismo en el momento de cerrar la incisión descrita es necesario visualizar la desembocadura de las venas pulmonares favoreciendo un adecuado drenaje.

En pacientes que fueron llevados a cierre de CIA se debe sospechar complicaciones en relación con las estructuras adyacentes al septo interauricular.

Conclusiones

Durante intervenciones quirúrgicas cardíacas se debe tener precaución para prevenir complicaciones como la estenosis de venas pulmonares, o el mal posicionamiento de dispositivos percutáneos. En caso de sospecharlas el abordaje multidisciplinario es crucial para la correcta identificación y tratamiento. El uso de ETE y angiotomografía puede ser útil para identificar estenosis de vena pulmonar, determinar sus características y en ocasiones la causa. La corrección de EVP es viable y debe individualizarse cada caso en particular.

Consideraciones éticas

La intervención mediante procedimiento quirúrgico fue aprobada por el Comité de Ética e Investigación de la Clínica Universitaria Colombia. Los autores disponen del consentimiento informado de los pacientes para la publicación del artículo.

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no existe ningún tipo de conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Losay J, Lambert V. Fermeture percutanée des communications interauriculaires, des indications bien définies. *Presse Med.* 2004;33:966–73.
2. Boudoulas KD, Marmagkiolis K, Boudoulas H. Atrial septal defect sizing and transcatheter closure. 2019;43210:105–8.
3. Nishimura S, Izumi C, Amano M, Miyake M, Tamura T, Kondo H, et al. Incidence and predictors of aggravation of mitral regurgitation after atrial septal defect closure. *Ann Thorac Surg.* 2017;104:205–10.
4. Pazos-López P. Pulmonary vein stenosis: Etiology, diagnosis and management. *World J Cardiol.* 2016;8:81.

5. Edriss H, Denega T, Test V, Nugent K. Pulmonary vein stenosis complicating radiofrequency catheter ablation for atrial fibrillation: A literature review. *Respir Med.* 2016;117:215–22.
6. Galizia M, Renapurkar R, Prieto L, Bolen M, Azok J, Lau CT, et al. Radiologic review of acquired pulmonary vein stenosis in adults. *Cardiovasc Diagn Ther.* 2018;8:387–98.
7. Agha RA, Borrelli MR, Farwana R, Koshy K, Fowler AJ, Orgill DP, et al. The SCARE 2018 statement: Updating consensus Surgical CAse REport (SCARE) guidelines. *Int J Surg.* 2018;60:132–6.
8. Hiraishi M, Tanaka H, Motoji Y, Sawa T, Tsuji T, Miyoshi T, et al. Impact of right ventricular geometry on mitral regurgitation after transcatheter closure of atrial septal defect. *Int Heart J.* 2015;56:516–21.
9. Akagi T. Current concept of transcatheter closure of atrial septal defect in adults. *J Cardiol.* 2015;65:17–25.
10. Kato H, Fu YY, Zhu J, Wang L, Aafaqi S, Rahkonen O, et al. Pulmonary vein stenosis and the pathophysiology of “upstream” pulmonary veins. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2014;148:245–53.
11. Fender EA, Widmer RJ, Mahowald MK, Hodge DO, Packer DL, Holmes DR. Recurrent pulmonary vein stenosis after successful intervention: Prognosis and management of restenosis. *Catheter Cardiovasc Interv.* 2020;95:954–8.
12. Kalfa D, Belli E, Bacha E, Lambert V, di Carlo D, Kostolny M, et al. Outcomes and prognostic factors for postsurgical pulmonary vein stenosis in the current era. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2018;156:278–86.
13. Schoene K, Sepehri Shamloo A, Sommer P, Jahnke C, Paetsch I, Hindricks G, et al. Natural course of acquired pulmonary vein stenosis after radiofrequency ablation for atrial fibrillation—Is routine follow-up imaging indicated or not? *J Cardiovasc Electrophysiol.* 2019;30:1786–91.