

# Hemoptisis recurrente por anastomosis sistemicopulmonar de la arteria frénica inferior derecha. Tratamiento mediante embolización percutánea

J.A. Zaga Ortega, E. Ramírez Delphino<sup>a</sup>, A. Carrillo Díaz<sup>a</sup> y L. Quispe Atuncar<sup>b</sup>

Médico Asistente. Servicio de Neumología. Hospital Nacional Edgardo Rebagliati Martins, EsSalud. Lima. Perú. <sup>a</sup>Médicos Asistentes. Unidad de Radiología Vasculare e Intervencionista. Hospital Nacional Edgardo Rebagliati Martins. EsSalud. Lima. Perú. <sup>b</sup>Jefe del Servicio de Neumología. Hospital Nacional Edgardo Rebagliati Martins. EsSalud. Lima. Perú.

Las anastomosis sistemicopulmonares ocasionan una fístula de izquierda a derecha, produciendo, al margen de su etiología, un incremento de la saturación de oxígeno en la arteria pulmonar ipsilateral. Se han descrito radiológicamente de forma esporádica en pacientes con hemoptisis, siendo las principales causas traumáticas, inflamatorias o congénitas, muchas veces quedando la procedencia de la hemoptisis desconocida.

Presentamos el caso de un paciente de 33 años de edad, con hemoptisis recurrente sin diagnóstico de la causa del sangrado, con radiografía de tórax normal. La profundización del estudio con broncofibroscopia, tomografía helicoidal y arteriografía selectiva permitió el diagnóstico de una fístula entre la arteria diafragmática inferior derecha y la arteria pulmonar. El tratamiento fue la embolización percutánea transcatheter.

**Palabras clave:** Hemoptisis. Embolización. Fístula. Shunt.

## Introducción

La anastomosis entre la circulación sistémica y la pulmonar resultan en la producción de un *shunt* con aumento de la saturación de oxígeno en la arteria pulmonar ipsilateral y son causa frecuente de hemoptisis. Sin embargo, su demostración radiológica se limita a casos esporádicos<sup>1</sup>. Se aceptan cuatro formas de manejar estas hemoptisis: médica, quirúrgica, endobronquial y endovascular<sup>2</sup>. El manejo conservador de la hemoptisis grave tiene una mortalidad del 50 al 85%. La mayor parte de los centros manejan a estas emergencias usando terapias agresivas. La resección quirúrgica de la fuente de sangrado es el tratamiento inicial de elección y puede ser curativa, pero muchos pacientes con una enfermedad pulmonar crónica y limitada reserva pulmonar se considera que tienen un riesgo quirúrgico inaceptable. Este

Recurrent hemoptysis due to systemic-pulmonary anastomosis of the inferior right phrenic artery. Treatment by percutaneous embolization

Systemic-pulmonary-artery anastomoses resulting in a left-to-right shunt, regardless of the etiology, the anastomosis resulting shunt produces increased oxygen saturation in the ipsilateral pulmonary artery. They are radiologically seen sporadically in patients with hemoptisis, being main causes: traumatic, inflammatory or congenital, many times keeps etiology unknown.

We present the case of a 33 year-old male with recurrent hemoptisis without etiology defined; his chest x-ray was reported as normal. The study was completed with bronchoscopy, HRCT and selective arteriography, allowed diagnosis of shunt diafragmatic lower right artery with pulmonary artery. Finally our patient was treated by percutaneous transcatheter embolization.

**Key words:** Hemoptysis. Embolization. Fistula. Shunt.

grupo puede beneficiarse de una embolización percutánea paliativa. Hay además evidencia de que la embolización arterial prequirúrgica disminuye significativamente la tasa de mortalidad quirúrgica<sup>3</sup>.

La embolización de la arteria bronquial (BAE) está indicada si la hemoptisis no puede controlarse por medidas conservadoras o con tratamiento quirúrgico. La BAE se acepta bien y se une ampliamente para el manejo de la hemoptisis masiva y recurrente<sup>4</sup>. Son muchas las causas de hemoptisis masiva, siendo más frecuente en casos de bronquiectasias y tuberculosis<sup>5</sup>. Las hemoptisis mejor controladas por embolización ocurren como resultado de enfermedades localizadas<sup>6</sup>. El origen más frecuente de la hemorragia son las arterias bronquiales. Sin embargo, también pueden originarse a partir de la arteria pulmonar o de la circulación sistémica<sup>7</sup>. En pacientes con episodios de hemoptisis moderada que ocurren en un período de semanas o meses, la embolización debe ser el tratamiento de primera elección. Las indicaciones se han ampliado a los pacientes con hemoptisis leves y compromiso pulmonar difuso que requieren terapia respiratoria<sup>6</sup>.

Correspondencia: Dr. J.A. Zaga Ortega.  
Servicio de Neumología 12-B. Hospital Nacional Edgardo Rebagliati.  
Jr. Rebagliati, s/n. Jesús María. Lima. Perú.  
Correo electrónico: antoniozaga@terra.com.pe

Recibido: 05-07-01; aceptado para su publicación: 16-10-01.

Presentamos el caso de un paciente con una hemoptisis recurrente por anastomosis sistemicopulmonar de la arteria frénica inferior derecha tratado mediante embolización percutánea transcáteter.

### Observación clínica

Paciente de 33 años de edad, con episodios de hemoptisis recurrentes de dos años de evolución, trabajador administrativo. Negaba tabaquismo ni contactos de tuberculosis. Refería episodios de hemoptisis de 2 años de evolución, en tres oportunidades entre 100 y 250 ml cada vez, siendo el último 5 meses antes de ser estudiado por nosotros. En todos estos episodios requirió de hospitalización. Le realizaron una broncofibroscopia diagnóstica, ubicando el lugar del sangrado, que provenía de los segmentos basales del pulmón derecho. Los cultivos de gérmenes comunes, hongos y *Mycobacterium tuberculosis* fueron negativos. Fue transferido a nuestro Hospital con el diagnóstico de bronquiectasias y para valorar la posibilidad quirúrgica.

En junio de 1999 el paciente acudió a nuestro hospital sin evidencia de hemoptisis. La exploración clínica y los exámenes de laboratorio fueron normales. Se solicitó una tomografía convencional, que fue informada como normal. En la broncofibroscopia se evidenció sangrado activo en el segmento 7 del pulmón derecho, siendo los cultivos para gérmenes comunes, *M. tuberculosis* y hongos negativos. La citología fue negativa para neoplasia y las pruebas funcionales respiratorias fueron normales. Ante la evidencia de sangrado por broncofibroscopia, se realizó una tomografía de alta resolución en fase arterial y venosa, con reconstrucción digital, en la que se encontró trayectos lineales serpinginosos en zona basal posterior del pulmón derecho, cara interna, que coincidía con el segmento 7. No puede identificarse vaso sanguíneo proveniente de la aorta descendente, quedando pendientes los diagnósticos de malformación vascular pulmonar o secuela parenquimal inflamatoria. El estudio angiográfico con el paciente hospitalizado incluyó la arteriografía pulmonar, la aortografía y el estudio de las arterias intercostales, bronquiales, mamarias internas y frénicas superiores. En el estudio selectivo de la arteria frénica inferior derecha, se apreciaron pequeñas comunicaciones fistulosas con ramas de la arteria pulmonar correspondiente al segmento medial basal del lóbulo inferior derecho (figs. 1a y b). Se amplió el estudio con una arteriografía pulmonar, que resultó normal. Se decidió el tratamiento mediante embolización selectiva del segmento diagnosticado. El procedimiento se realizó por vía femoral derecha, mediante el empleo de una funda introductora 6F, catéter guía hidrofílico 5F, que se ubicó en el ámbito de la porción proximal de la arteria frénica derecha, realizándose un cateterismo ultraselectivo de los ramos aferentes con microcatéter (3F proximal/2,5 F distal) y microguía. Una vez corroborada la adecuada ubicación del sistema coaxial se realizó una embolización con partículas calibradas de polivinil alcohol (PVA) de 350-500 micras, realizándose controles angiográficos sucesivos hasta el total cierre de las comunicaciones anastomóticas (figs. 2a y b). El paciente toleró el procedimiento. No se presentaron complicaciones ulteriores y no se evidenciaron nuevos episodios de hemoptisis hasta el momento actual.

### Discusión

Las anastomosis entre la circulación sistémica y la pulmonar pueden ocurrir en asociación con enfermedades congénitas y adquiridas. La variedad adquirida, que es la más frecuente, puede separarse sobre la base de

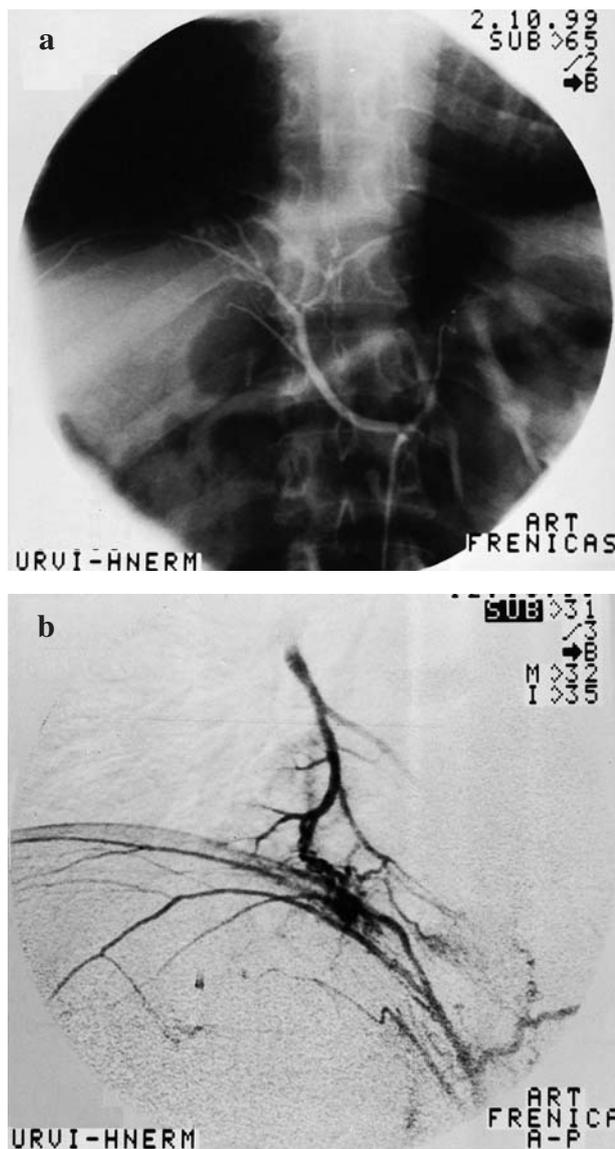


Fig. 1a. La angiografía panorámica selectiva detalla el aspecto vascular en la región basal medial del lóbulo inferior derecho. 1b. Un acercamiento describe gráficamente la lesión fistulosa.

los hallazgos angiográficos en *shunt* retrógrado sistémico pulmonar (secundario a procesos inflamatorios, neoplásicos o traumáticos) y en *shunt* anterógrado (raramente observado en los procesos inflamatorios). La variedad congénita frecuentemente es un problema nosológico, ya que la historia no suele ser útil. Cuando no existe una apariencia angiográfica que permita distinguir las variedades congénitas de las adquiridas lo más apropiado sería hablar de causa desconocida<sup>2</sup>. Tres mecanismos básicos pueden llevar al *shunt*: a) en la obstrucción de la vena pulmonar, múltiples anastomosis preexistentes que se abren debido a cambios en los gradientes de presiones; b) en los pacientes con una oclusión de la arteria pulmonar el *shunt* puede deberse a un embolismo pulmonar o a una ligadura quirúrgica; en

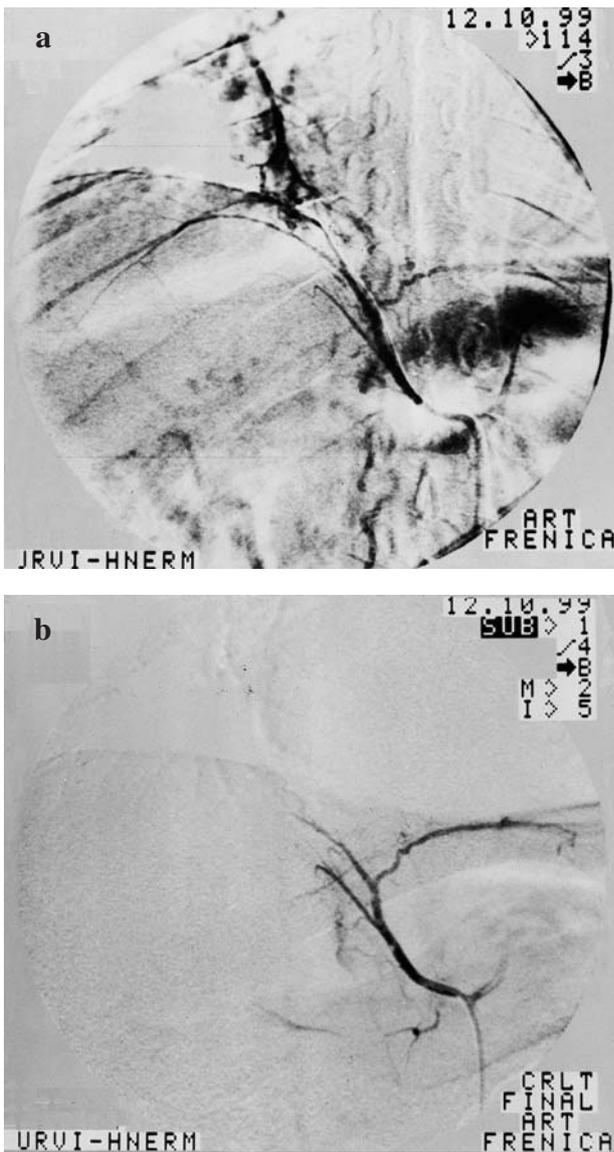


Fig. 2a. El angiograma con el catéter ubicado en el ostium de las arterias frénicas inferiores, opacificadas retrógradamente, muestra finas comunicaciones fistulosas entre las ramas de la arteria frénica inferior derecha y las ramas distales de la arteria pulmonar en el segmento 7 del pulmón derecho. 2b. El control angiográfico final evidencia un adecuado bloqueo de la rama frénica inferior derecha, con permeabilidad de las ramas adyacentes no comprometidas.

general, la hipoxia en el tejido alveolar intersticial pulmonar es el factor más importante que estimula la circulación colateral, y c) en los pacientes con una enfermedad pulmonar inflamatoria crónica nuevos vasos pueden formarse cuando hay un tejido de granulación extenso, adherencias pleurales o un incremento de las necesidades metabólicas del músculo y un tejido linfóide bronquial hipertrofiado, que lleva al *shunt*. Sin embargo, verdaderos *shunts* broncopulmonares existen en pulmones normales y no sólo en condiciones patológicas<sup>1</sup>.

El estudio diagnóstico en los pacientes con una hemoptisis debe comenzar con una broncoscopia para

identificar el sitio de sangrado<sup>6</sup>. La aortografía descendente realizada antes del cateterismo selectivo es útil a modo de mapeo. Aunque hay gran variación en la localización de la arteria bronquial, la búsqueda debe comenzar en el nivel T5-T6 (el 80% de casos). Ocasionalmente, en los segmentos basales, la arteria frénica inferior puede ser la fuente principal de sangrado<sup>6</sup>. El hallazgo angiográfico más frecuente es la hipervascularización, el aumento del calibre del vaso y su irregularidad. En caso de negatividad de la arteriografía se debe realizar una arteriografía pulmonar<sup>5</sup>.

En nuestro paciente se encontró un *shunt* retrógrado de la arteria frénica inferior derecha con la arteria pulmonar correspondiente al territorio del segmento 7 (nuestra sospecha de un probable proceso inflamatorio no pudo corroborarse). El estudio angiográfico incluyó la arteriografía pulmonar, que fue de importancia capital para descartar una oclusión de la arteria pulmonar como etiología del *shunt*. Esto permitió el bloqueo percutáneo de las comunicaciones fistulosas, al demostrarse la preservación del flujo arterial pulmonar en el territorio comprometido (segmento 7), ya que si el *shunt* hubiera sido la única suplencia vascular en el segmento mencionado, su oclusión pudiera resultar en un infarto.

Después de la oclusión con un catéter balón o un balón desprendible (antes de su liberación), deben evaluarse el estado clínico y niveles de gases arteriales. Si no hay deterioro significativo en la saturación de oxígeno, la frecuencia cardíaca y la frecuencia respiratoria, la embolización puede realizarse con seguridad<sup>8</sup>. En cuanto a la técnica de emboloterapia, casi todos los materiales de embolización son útiles, excepto el etanol, que casi está proscrito. El gelfoam es el agente embolizante más frecuentemente usado (en fragmentos de 0,5 a 2 mm de diámetro). Es importante embolizar ramas distales y preservar el tronco proximal del vaso, con un doble propósito: primero, mantener patentes las ramas mediastínicas y que van al cordón espinal y, segundo, el acceso al área del sangrado queda disponible si se requiere una próxima intervención percutánea<sup>6</sup>. El polivinil alcohol (PVA) es otro agente empleado comúnmente. Las partículas de diámetro mayor de 200-500  $\mu$ m deben usarse para evitar la isquemia tisular y el daño neurológico. Partículas de 250-590  $\mu$ m son compatibles con sistemas coaxiales. Las jeringas de 3 a 5 ml se usan con catéteres 5F, mientras que las de 1 ml se usan con catéteres 3F. Las partículas se mezclan y colocan en suspensión. Como con todos los procedimientos de embolización, una inyección de contraste debe realizarse después de cada alícuota de material. Cuando el flujo sanguíneo se halla marcadamente reducido, la inyección de PVA se concluye<sup>3</sup>. Esta metodología de trabajo se empleó en nuestro paciente, utilizándose partículas de PVA de tamaño regular (350-500 micras) para evitar su migración a través del *shunt*. Algunos autores usan una embolización algo más proximal con Gelfoam. Ocasionalmente, enormes arterias bronquiales flujo y grandes *shunts* sistémico-pulmonares requieren el uso de *coils* para lograr una adecuada y segura embolización. El tamaño de los *coils* debe ser 15-25% mayor que el del vaso para evitar su migración<sup>3</sup>. Otras alternativas en grandes *shunts* es el

uso de materiales desprendibles, tales como los balones de látex y los *spiders* vasculares<sup>8</sup>.

El éxito técnico para la embolización es alto (99%). El éxito clínico es un poco menor (95%). Así, la embolización logra controlar el sangrado entre el 84-100% de los casos. Lo que puede constituir el tratamiento definitivo o permitir planificar una cirugía electiva, disminuyendo la morbimortalidad. En el seguimiento a largo plazo se ha cifrado una tasa de control de la hemoptisis de 70-88% con seguimiento de 1-60 meses. El fallo de la técnica ocurre en un 4 a 13% de casos. El resangrado o recidiva se presenta en un 20-50% de casos.

Las complicaciones son excepcionales si se respeta una técnica adecuada y minuciosa, aunque si aparecen pueden ser graves, como la embolización accidental de una rama arterial medular, ocasionando mielitis o parálisis. También pueden aparecer disfagia por la embolización de pequeñas ramas esofágicas. Una complicación infrecuente es la fístula broncoesofágica posnecrosis. Complicaciones menos importantes son el dolor torácico en la embolización de ramas intercostales o mamarias<sup>5</sup>.

#### BIBLIOGRAFÍA

1. Tadavarthi SM, Klugman J, Castañeda-Zuniga WE, Nathand PH, Amplatz K. Systemic-to-pulmonary collaterals in pathological states: a review. *Radiology* 1982;144:55-9.
2. Jardín M, Remy J. Control of hemoptysis: systemic angiography and anastomoses of the internal mammary artery. *Radiology* 1988;168:377-83.
3. Mauro M, Jaques PF, Morris S. Bronchial artery embolization for control of hemoptysis. *Semin Intervent Radiol.* 1992;9:45-50.
4. Uflacker R, Kaemmerer A, Picon PD, Rizzon CF, Neves CM, Oliveira ES, et al. Bronchial artery embolization in the management of hemoptysis: technical aspects and long-term results. *Radiology* 1985;157:637-44.
5. De Gregorio MA, Mainar Turón A. Tratamiento percutáneo de la hemoptisis masiva. En: *Radiología intervencionista en Neumología* 1998;1:20-5.
6. Vujic I, Uflacker R. Radiologic management of hemoptysis. Current techniques in interventional radiology. *Current Science*. Philadelphia: C Cope, 1995; p. 2:30-7.
7. Gimeno Peribáñez MJ, Madariaga B, Alfonso Aguirán ER, Medrano Peña J, Fernández Gómez JA, Herrera M, et al. Hemoptisis amenazante: tratamiento mediante embolización transcáteter. *Arch Bronconeumol* 1999;35:379-84.
8. Lois FJ, Gomes AS, Smith DC and Laks H. Systemic to pulmonary collateral vessels and shunts: treatment with embolization. *Radiology* 1988;169:671-6.