

## Hemoptisis en un paciente con el antecedente de corrección quirúrgica de una tetralogía de Fallot

J.I. Quintana González, R. Castrodeza Sanz, F. Heras\*, V. Gutiérrez\*\*, G. Guzmán Dávila y J. Ortiz de Saracho y Bobo

Sección de Neumología. Hospital del Bierzo. Ponferrada. León.

\*Servicios de Cirugía Torácica y \*\*Cirugía Vascul. Hospital Clínico Universitario de Valladolid.

La fístula aortobronquial es una anomalía rara, pero de elevada mortalidad. Aunque la mayoría de los casos descritos son secundarios a aneurismas infecciosos, recientemente se han referido algunos casos de origen posquirúrgico tras la corrección de anomalías congénitas cardiovasculares. Presentamos el caso de un paciente de 41 años con hemoptisis de repetición y el antecedente de una tetralogía de Fallot corregida en la infancia. Ante un paciente como éste, con un antecedente quirúrgico cardiovascular y una hemoptisis, el enfoque diagnóstico correcto incluye la broncofibroscopia, la TAC helicoidal y/o la RMN, y la aortografía. La confirmación diagnóstica debe seguirse de una corrección quirúrgica precoz.

**Palabras clave:** Hemoptisis. Fístula aortopulmonar. Tetralogía de Fallot.

(Arch Bronconeumol 2000; 36: 494-496)

Hemoptysis in a patient with a history of surgical correction of Fallot's tetralogy

Aorto-bronchial fistula is a rare but associated with a high rare of mortality. Although most reported cases are secondary to infectious aneurysms, cases arising after surgery to correct congenital cardiovascular abnormalities have recently been described. We report the case of a 41-year-old patient with recurrent hemoptysis and a history of Fallot's tetralogy corrected in childhood. Given such a case of hemoptysis in a patient with a history of cardiovascular surgery, the correct diagnostic approach includes fiberoptic bronchoscopy, helicoidal CAT and/or NMR, and aortography. Diagnostic confirmation should be followed soon by corrective surgery.

**Key words:** Hemoptysis. Aortopulmonary fistula. Fallot's tetralogy.

### Introducción

Las fístulas aortobronquiales (FAB) fueron descritas por primera vez en 1934 por Keefer y Malory<sup>1</sup>. Se trata de una anomalía rara, pero mortal. Clásicamente, la mayoría de los casos se producían sobre un aneurisma de la aorta torácica<sup>2-4</sup> de origen tuberculoso o luético<sup>4,5</sup>. Otras causas menos frecuentes son los traumatismos y las fístulas espontáneas de un ductus arterioso persistente<sup>6</sup>. Recientemente, sin embargo, los aneurismas arterioscleróticos y las complicaciones de la cirugía cardiovascular y torácica han sustituido a los aneurismas infecciosos como causas principales<sup>1,5,7</sup>.

Los aneurismas arterioscleróticos ocurren generalmente en ancianos, en tanto que los aneurismas posquirúrgicos pueden encontrarse en pacientes de cualquier edad, tras injertos para la reparación de aneurismas aórticos<sup>8</sup>, o en pacientes, generalmente jóvenes, que han sufrido una

corrección quirúrgica de anomalías congénitas cardiovasculares<sup>9</sup>. En una búsqueda bibliográfica desde 1970 tan sólo hemos encontrado unos 30 casos de fístulas con dicha etiología, siendo las malformaciones corregidas más frecuentes la coartación aórtica, en 20 casos, y el ductus arterioso persistente, en cuatro<sup>6,8,9</sup>. Tan sólo hemos encontrado un caso de tetralogía de Fallot corregida en tres tiempos, que presentó varios episodios de hemoptisis secundaria a fístulas posquirúrgicas<sup>9</sup>. El caso que presentamos es muy similar.

### Observación clínica

Paciente de 41 años, diagnosticado de tetralogía de Fallot, que había sido intervenido a los 4 años de edad con una anastomosis tipo Blalock, desde la arteria subclavia a la arteria pulmonar. Posteriormente, a los 9 años de edad, se le realizó una resección del infundíbulo del ventrículo derecho y el cierre de la comunicación interventricular (CIV) con un parche, quedando una pequeña comunicación interventricular persistente. En 1994 se le implantó una prótesis aórtica S. Jude por una insuficiencia aórtica, practicándose el cierre de la CIV persistente. Desde entonces, el paciente seguía tratamiento anticoagulante con dicumarínicos.

Correspondencia: Dr. J.I. Quintana González.  
Sección de Neumología. Hospital del Bierzo.  
Fuentesnuevas, s/n. 24400 Ponferrada. León.

Recibido: 22-5-00; aceptado para su publicación: 26-6-00.

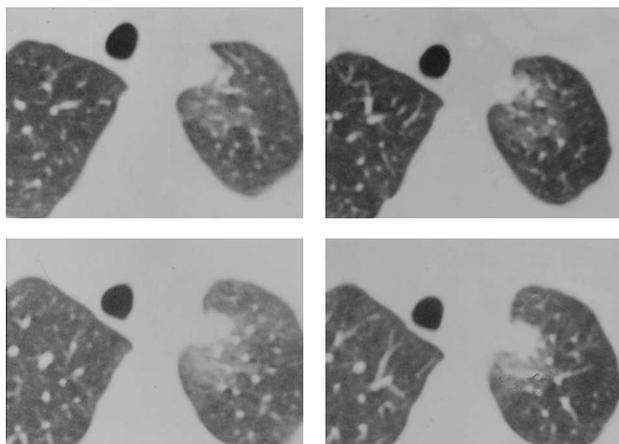


Fig. 1. Imagen tubular paraaórtica correspondiente a la anastomosis subclavio-pulmonar, con salida de contraste a parénquima pulmonar.

El paciente acudió a nuestro hospital por tos y hemoptisis leves de 5 a 10 ml, repetidas durante el período de un mes, que persistían a pesar de los tratamientos antibióticos y antitusivos prescritos en otro centro hospitalario y que ocurrían en el contexto de una excesiva anticoagulación. La exploración física en el momento de ingreso ponía de manifiesto una coloración normal de piel y mucosas, con auscultación cardíaca rítmica a 110 lat/min, con un soplo sistólico multifocal. En la auscultación pulmonar existía hipoventilación basal izquierda. La radiografía de tórax demostraba una parálisis diafragmática izquierda, posquirúrgica, ya presente en radiografías previas, y un tenue aumento de densidad en el ápex izquierdo. El hemograma fue normal y el tiempo de Quick del 17%. Se practicó una fibrobroncoscopia, que demostró restos hemáticos frescos en los bronquios segmentarios del culmen del lóbulo superior izquierdo (LSI), sin otros hallazgos de interés. En la TAC convencional se observaba, en la zona paraaórtica, a la altura de la arteria subclavia izquierda y del cayado aórtico, una imagen tubular de 0,5 cm de diámetro y 4 cm de longitud. Valorada mediante TAC helicoidal, correspondía a una estructura vascular sugestiva de un ductus arterioso, calcificada en su extremo distal, además de una condensación parenquimatosa adyacente (fig. 1), en el LSI, que correspondía a la zona de sangrado en la fibrobroncoscopia. Tras el ajuste de la dosis de dicumarínicos, la hemoptisis mínima no volvió a repetirse y el paciente fue dado de alta para un seguimiento en la consulta externa y para programar una futura embolización en caso de repetirse el sangrado.

Posteriormente, a las 2 semanas, se repitió la hemoptisis leve (5-10 ml), por lo que se realizó una arteriografía aórtica, de las arterias bronquiales y subclavia, que demostró un muñón arterial que se originaba en la arteria subclavia izquierda y que correspondía a la parte superior del *bypass* subclavio pulmonar (fig. 2). Se desestimó la embolización por el corto trayecto del vaso y la anchura del mismo. El enfermo fue remitido entonces al servicio de cirugía cardiovascular. En espera de ser valorado ambulatoriamente, presentó un episodio de dolor torácico en el hemitórax izquierdo y una hemoptisis franca con síncope. Ingresó con una presión arterial de 100/50 mmHg, una frecuencia cardíaca de 110 lat/min y una auscultación pulmonar con roncus en ambos campos pulmonares. Los datos del hemograma fueron: hemoglobina 11,6 g/dl, hematocrito 35, VCM 86 H, serie blanca y plaquetas normales. En cuanto a la coagulación, el tiempo de Quick fue del 20%. Tras la estabilización del enfermo en la UCI con fluidoterapia y transfusión de 3 concentrados de hemáties, se suspendió la anticoagulación y fue derivado al



Fig. 2. Muñón arterial que se origina en la arteria subclavia izquierda que corresponde a la parte superior del *bypass* fistulizado a parénquima pulmonar.

centro de referencia de cirugía torácica y vascular, donde se procedió a la colocación de una endoprótesis vascular en la subclavia izquierda para ocluir la salida del *bypass*. Se realizó una toracotomía izquierda, evidenciándose la existencia de un *bypass* de Teflón, que se extendía desde la cara inferior de la subclavia izquierda a la parte superior de la arteria pulmonar. La parte superior del *bypass* presentaba una fistulización hasta el segmento apical de LSI. Se realizó la desconexión de las fistulas presentes y la exéresis atípica del LSI. El postoperatorio fue normal. A los 6 meses de la intervención quirúrgica el paciente está asintomático.

## Discusión

Las fístulas aortobronquiales, como complicación de la cirugía de corrección de anomalías congénitas, son raras, siendo la corrección de la coartación aórtica la descrita con más frecuencia en la bibliografía. El desarrollo tardío de falsos aneurismas tras la cirugía vascular se relaciona con la técnica quirúrgica usada. La incidencia después de una anastomosis término-terminal es sólo del 1%. Sin embargo, cuando se usa un injerto vascular de Dacrón se incrementa al 7%, mientras que el uso de parches resulta en una incidencia del 20 e incluso del 24%<sup>9,10</sup>. La presencia de material extraño (material de sutura, parches, Teflón) puede provocar una respuesta inflamatoria, con la adherencia subsecuente del material extraño al parénquima pulmonar y la formación de fístulas aortobronquiales<sup>9</sup>. El síntoma de presentación de la fístula aortobronquial es la hemoptisis, variable en duración y volumen. El dolor torácico es otro síntoma frecuente, recogiéndose en el 45% de los casos publicados<sup>9</sup>. Otros síntomas posibles son tos y disnea<sup>8</sup>. La hemoptisis masiva, definida como la expectoración de 600 ml de sangre en 24 h, ocurre en el 79% de los casos y es a menudo fatal<sup>4</sup>, como ocurrió en el paciente con antecedente de *bypass* y corrección quirúrgica de tetralogía de Fallot comunicado por Hiep-Van Casteren et al<sup>9</sup>. En el paciente que comunicamos no se amplió el estudio inicialmente, quizás porque se atribuyó el sangrado a una excesiva anticoagulación. Se han descrito otros errores en el enfoque diagnóstico, dados los pocos casos descri-

tos<sup>9</sup>. Una vez completado el estudio con la broncofibroscopia y la TAC helicoidal, se valoró la embolización mediante una angiografía dentro del manejo habitual de la hemoptisis de repetición. Al no ser posible, se decidió una valoración quirúrgica ambulatoria al autolimitarse la hemoptisis. Esta demora pudo ser fatal, como lo demuestra la hemoptisis masiva posterior, con inestabilidad hemodinámica. Esto nos hace incidir en la necesidad de valorar quirúrgicamente, de forma urgente, a este tipo de pacientes con hemoptisis y antecedente de cirugía cardiovascular, con independencia del tiempo transcurrido desde la misma, pues se han descrito casos a los 9 años de la corrección de ductus arterioso<sup>6</sup> y a los 25 años de la corrección de la coartación aórtica y de la tetralogía de Fallot<sup>9</sup>. En el caso aquí comunicado el tiempo transcurrido desde la intervención quirúrgica fue de más de 30 años.

Respecto al enfoque diagnóstico, la broncoscopia es útil para localizar el sitio de sangrado en el 92% de los pacientes con una fístula aortobronquial y excluir anomalías endobronquiales. Deben realizarse una TAC torácica helicoidal y una aortografía, que demostrarán el defecto vascular, si lo hay. Sin embargo, rara vez se observará la fístula, que a menudo se rellena con coágulos. Algún estudio ha recomendado la RMN como exploración de elección<sup>11</sup>.

Una fístula aortobronquial debería ser siempre tratada quirúrgicamente. Durante la operación es importante extirpar todo el material protésico viejo, dado que puede ser causa de inflamación persistente. Algunas veces es necesaria la resección pulmonar. Dependiendo del sitio del nuevo defecto, puede necesitarse un injerto protésico, aunque algunas veces la fístula puede cerrarse con sutura directa. Para prevenir el contacto directo entre la reconstrucción vascular y el tejido pulmonar, el nuevo injerto y la sutura deberían cubrirse con los restos de la pared del aneurisma, si los hay, o con tejido viable circundante, como músculo intercostal, pleura, pericardio, grasa tímica o pedículo omental<sup>12</sup>.

En conclusión, la fístula aortobronquial debe considerarse en cualquier paciente con hemoptisis mayor e historia de cirugía torácica aórtica. Se requiere el examen urgente, porque en cualquier momento puede ocurrir una hemoptisis fatal. El diagnóstico temprano, seguido por una corrección quirúrgica, tiene una supervivencia del 80%. La supervivencia a largo plazo y la calidad de vida son buenos<sup>9</sup>.

#### BIBLIOGRAFÍA

1. Keefer CS, Malory K. The pulmonary and pleural complications of aortic aneurysms. *Am Heart J* 1934; 10: 208-220.
2. Caes F, Taeymans Y, Van Nooten G. Aortobronchia fistula: a late complication of coarctation repair by patch aortoplasty. *Thorac Cardiovasc Surg* 1993; 41: 80-82.
3. Macintosh EL, Parrot JCW, Unruh HW. Fistula between the aorta and tracheobronchial tree. *Ann Thorac Surg* 1991; 51: 515-519.
4. Demeter SL, Cardasco EM. Aortobronchial fistula: key to successful management. *Angiology* 1980; 31: 431-435.
5. Symbas PN, Hunter RM, Vlasis SE, Ansley JD. Infected descending aortic fistula. *Ann Thorac Surg* 1986; 41: 647-651.
6. Wood AF, Stevenson HM, Cleland J. Aortobronchial fistula: a late complication of division of persistent ductus arteriosus. *Ann Thorac Surg* 1984; 20: 402-405.
7. Coblenz CL, Salle DS, Chiles C. Aortobronchopulmonary fistula complicating aortic aneurysm: diagnosis in four cases. *AJR* 1988; 150: 535-538.
8. Garniek A, Morag B, Schmahmann S, Rubinstein ZI. Aortobronchial fistula as complication of surgery for correction of congenital aortic anomalies. *Radiology* 1990; 175: 347-348.
9. Hiep-Van Casteren SCAM, Westermann CJJ, Hamerlijck RPHM, Cornelissen PHJGM, Overtom TTC. Aortobronchial fistula after correction of congenital cardiovascular abnormalities. *Eur Respir J* 1995; 8: 1796-1798.
10. Koller M, Rothlin M, Senning A. Coarctation of the aorta: review of 362 operated patients. Long-term follow-up and assesment of prognostic variables. *Eur Heart J* 1987; 8: 670-679.
11. Holdright DR, Kilner PJ, Somerville J. Haemoptysis from false aneurysm: near fatal complication of repair of coarctation of the aorta using Dacron patch. *Int J Cardiol* 1991; 32: 406-408.
12. Graeber GM, Farrel BG Jr, Neville JF Jr, Parker FB. Successful diagnosis and management of fistulas between the aorta and the tracheobronchial tree. *Ann Thoracic Surg* 1980; 29: 555-561.