

Cierre percutáneo de una fístula compleja entre la arteria mamaria interna y la arteria lobar pulmonar

Francisco J. Fernández^a, Pedro M. Montes^a, Juan Alcívar^b, David Rodrigo^a, José I. Barrenetxea^a y Rosario Gotxi^a

^aServicio de Cardiología. Hospital de Cruces. Baracaldo. Vizcaya. ^bServicio de Hemodinámica. Hospital de Cruces. Baracaldo. Vizcaya. España.

Tras una revisión exhaustiva de la literatura, hemos encontrado tan sólo 20 casos reportados de fístulas entre la arteria mamaria interna (AMI) y las arterias pulmonares. Frecuentemente se indica su cierre quirúrgico por las complicaciones que pueden acarrear. Presentamos el primer caso en el que el tratamiento se realiza de forma percutánea mediante una técnica mixta con un dispositivo Amplatzer Duct Occluder (ADO) asociado a *coils*.

Palabras clave: Arteria mamaria interna. Fístula. Coils.

Percutaneous Closure of Complex Fistula Between the Internal Mammary Artery and a Lobar Branch of a Pulmonary Artery

A through review of the literature identified only 20 reported cases of fistula involving the internal mammary (internal thoracic) artery and a lobar branch of a pulmonary artery. Surgical closure was frequently done to avoid complications associated with this anomaly. We report the first patient in whom percutaneous treatment was accomplished with a combined technique involving an Amplatzer Duct Occluder device and coils.

Key words: Internal mammary artery. Fistula. Coils.

Full English text available at: www.revespcardiol.org

INTRODUCCIÓN

Las fístulas arterioarteriales entre la arteria mamaria interna (AMI) y las arterias pulmonares son anomalías vasculares infrecuentes¹. En la gran mayoría de los casos cursan de forma asintomática y se detectan en el examen físico por la presencia de un soplo continuo característico².

El diagnóstico y la localización se realizan mediante aortografía y angiografía selectiva de la AMI¹. Dada la posibilidad de sobrecarga circulatoria, degeneración de la pared arterial, infección, rotura traumática u otras complicaciones³, puede estar indicado el cierre quirúrgico del defecto como se describe en los 20 casos registrados en la literatura.

Consideramos de interés nuestra aportación con este caso, por lo novedoso de practicar el cierre con catéter

de una fístula mamariopulmonar con doble aferencia arterial empleando una técnica mixta mediante *coils* y ADO.

CASO CLÍNICO

Varón de 32 años de edad, deportista, que presenta un soplo continuo descubierto casualmente en un examen médico de empresa. No presentaba factores de riesgo cardiovascular, antecedentes médicos relevantes, traumatismo torácico o cirugía previa. La radiografía de tórax no mostró hallazgos significativos y el electrocardiograma (ECG) reveló un ritmo sinusal con eje de QRS a 60°, sin crecimiento de cavidades ni alteraciones del ritmo o de la conducción. Se realizó un ecocardiograma transtorácico en el que se apreció una discreta dilatación de las cavidades derechas, sin datos de hipertensión arterial pulmonar, como único hallazgo. La tomografía computarizada (TC) toracoabdominal puso de manifiesto una imagen de posible fístula vascular entre la AMI derecha y una arteria aberrante con origen en la aorta abdominal y la arteria lobar pulmonar inferior derecha. A pesar de hallarse asintomático, se consideró el peligro de posibles traumatismos

Correspondencia: Dr. F.J. Fernández Fernández.
Cordelería, 3, 2.º D. 48013 Bilbao. Vizcaya. España.
Correo electrónico: mariaf@mibbva.com

Recibido el 30 de julio de 2003.
Aceptado para su publicación el 3 de marzo de 2004.

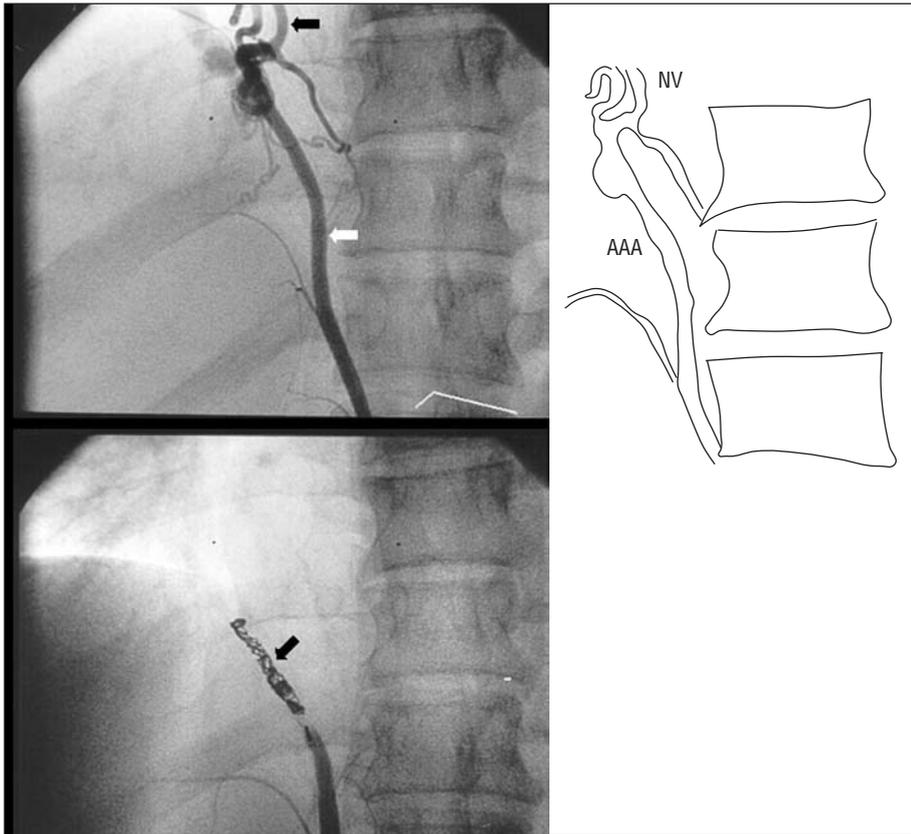


Fig. 1. Arriba: arteria aberrante aórtica (AAA) abdominal (flecha blanca) con inyección selectiva que se dirige a la región frénica dando flujo a una neoformación vascular (NV) (flecha negra). Abajo: implantación de 20 coils (flecha) en ese vaso aberrante con lo que se consiguió su oclusión completa.

torácicos que conlleva la práctica deportiva del paciente, por lo que se decidió realizar el cierre del defecto. El procedimiento se llevó a cabo por punción de la arteria femoral derecha por vía retrógrada. Se sondó selectivamente una gran arteria aberrante de 5 mm, próxima al tronco celíaco, que se dirigía a la región frénica anterior y medial derecha, para dar flujo a una neoformación vascular tipo ovillo de 4 cm de diámetro. Saliendo de este ovillo, un vaso eferente de 6 mm drenaba a la arteria lobar pulmonar inferior derecha. Seguidamente, se sondó selectivamente la arteria mamaria derecha, que se hallaba muy desarrollada: su diámetro era de 6 mm. Antes de continuarse con la epigástrica daba varias ramas aferentes para aquel ovillo vascular de la región frénica, con drenaje por la misma eferente que hemos comentado anteriormente. Para el cierre de la fístula arterioarterial aorticomamariopulmonar, se sondó selectivamente la arteria aberrante aórtica y se implantaron 20 coils MWCE-135-HILAL (COOK) de 5 mm de longitud por 4 mm de diámetro y se consiguió la oclusión completa del vaso (fig. 1). Seguidamente, se introdujo una vaina de 6 Fr en la gran mamaria y se implantó un dispositivo ADO de 6-8 mm y un Flipper coil PDA5 de 8 mm de diámetro por 5 vueltas y se cerró completamente el vaso (fig. 2). La diferencia de contenido arterial de oxígeno entre el ventrículo derecho y la arteria pulmonar derecha

fue de 1,3 vol.%, y no se hallaron anomalías en las presiones del circuito menor. La aortografía final mostró el cierre de la doble aferencia por oclusión de ambos vasos. Se administró antibióticos de forma profiláctica durante 7 días. A los 2 meses y al año se le realizaron sendas TC torácicas con contraste y se constató la desaparición de la fístula arterioarterial.

DISCUSIÓN

La fístula mamariopulmonar es una malformación rara, como lo demuestra el hecho de que sólo hemos encontrado 20 casos reportados tras una revisión exhaustiva de la literatura. El primer caso de fístula mamariopulmonar fue publicado por Burchell y Clagett², de la Clínica Mayo, en 1947. Estas malformaciones pueden ser clasificadas en 3 grandes grupos según sus conexiones anatómicas¹: a) las derivadas de la porción proximal de la AMI que conecta con la vena mamaria interna, la vena cava o la vena innominada; b) las que desde el tercio medio de la AMI conectan con la circulación pulmonar, y c) las que desde el tercio distal fistulizan con el sistema venoso vitelino. Otros shunts existentes entre las arterias sistémicas y las arterias pulmonares pueden tener su origen en las arterias intercostales, bronquiales, pericárdicas, pericardiofrénicas, torácico laterales y esofágicas, así como ramas

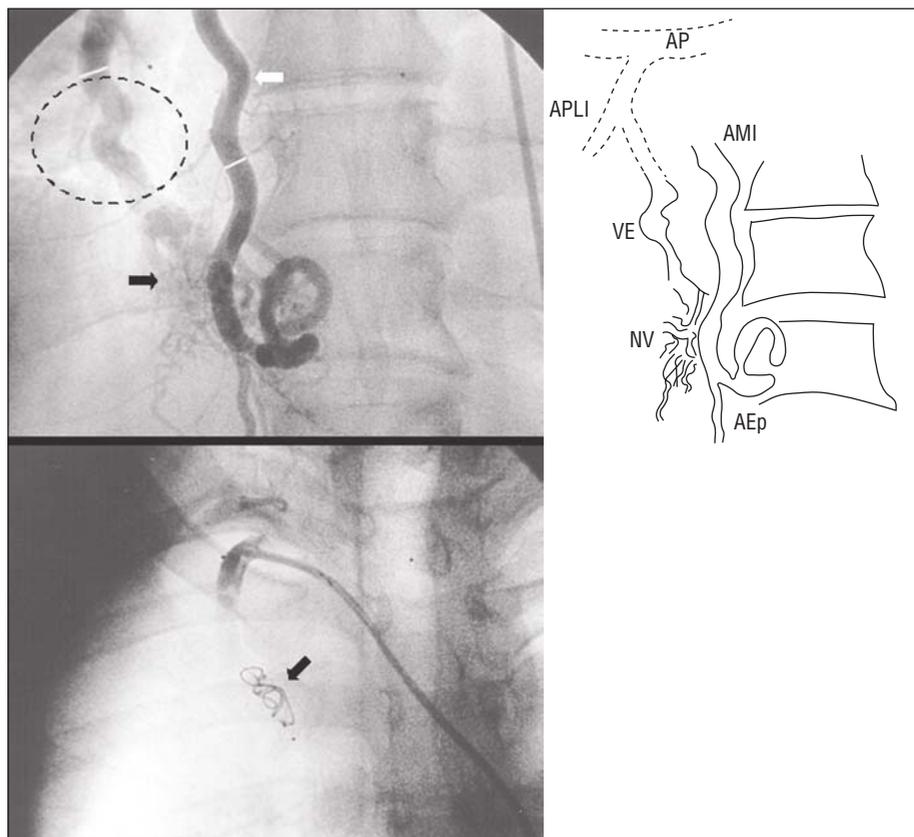


Fig. 2. Arriba: sondaje selectivo de la arteria mamaria interna (AMI) derecha que se halla muy desarrollada (flecha blanca) y da varias ramas al ovillo vascular (flecha negra). Del ovillo sale el vaso eferente (VE) (círculo) que drena en la arteria pulmonar lobar inferior (APLI). Abajo: cierre de la gran AMI con un dispositivo Amplatzer Duct Occluder (flecha). AEp: arteria epigástrica; AP: arteria pulmonar; NV: neoformación vascular.

anómalas de la aorta^{4,5} (como sucedió en nuestro caso).

La etiología de estas fístulas puede ser congénita o adquirida en el contexto de una noxa inflamatoria⁵⁻⁷, neoplásica⁸ o traumática^{4,9}. Asimismo, la fístula de origen congénito se ha descrito asociada con otras anomalías como la tetrada de Fallot¹⁰, con prolapso valvular mitral¹¹ o asociada al síndrome del nodo sinusal¹².

Diversos autores han propuesto que el origen de las fístulas congénitas se encuentra en el fallo de la regresión de los vasos capilares pulmonares y la aorta que comunican las dos circulaciones en el feto¹³. Las fístulas congénitas pueden ser aparentes al nacimiento, pero no llegan a ser funcionalmente activas hasta ser influidas por factores externos como traumatismos, infecciones o inflamaciones, neoplasias o trastornos metabólicos⁴.

El diagnóstico de estas fístulas se hace fundamentalmente en jóvenes entre la segunda y tercera décadas de la vida, con una edad media de 22 años. El paciente más joven diagnosticado tenía 7 años y el más anciano, 77 años. En ambos se llegó al diagnóstico por el hallazgo en la radiografía de tórax de una imagen anormal pulmonar. La razón varón:mujer es aproximadamente 2:1. La presentación clínica depende en parte de la repercusión funcional que estas fístulas tienen, que es proporcional al tamaño de los vasos involucra-

dos y de la fístula y su localización en relación con el corazón. Normalmente los pacientes pueden estar asintomáticos y raramente presentan síntomas. Como en nuestro paciente, un soplo continuo en el precordio apareció invariablemente en los 20 casos publicados. Esto plantea el diagnóstico diferencial fundamentalmente con el *ductus* persistente¹⁴, la fístula coronaria, la rotura del seno de Valsalva, la comunicación interventricular con insuficiencia aórtica, la coartación de aorta y las fístulas arteriovenosas. La radiografía de tórax, el ECG y la ecocardiografía aportarán datos valiosos para establecer el diagnóstico diferencial, pero en el caso que nos ocupa, de fístula entre la AMI y la arteria pulmonar, el diagnóstico deberá establecerse mediante angiografía selectiva¹.

Con el paso del tiempo, las fístulas arterioarteriales tienen el riesgo potencial de presentar dilatación en sus vasos, y producir síntomas como fallo cardíaco congestivo y endocarditis bacteriana¹¹. Dada la escasa casuística, la indicación quirúrgica para esta entidad no está claramente establecida. Algunos autores recomiendan que todos los pacientes –por el riesgo de rotura, endarteritis y fallo cardíaco congestivo por dilatación progresiva de los vasos anómalos– deben ser operados. Por otra parte, también hay autores que, ante la incertidumbre acerca de la eficacia de la cirugía a largo plazo y el escaso conocimiento de la historia na-

tural de esta anomalía –que puede ser benigna–, se inclinan por un tratamiento conservador en los pacientes jóvenes. La mayoría de los 20 casos reportados en la literatura fueron operados con ligadura de los vasos, sola o asociada a resección del tejido pulmonar. La mortalidad operatoria reportada fue nula¹¹.

El ADO se ha utilizado con éxito en el cierre completo de las fístulas arteriovenosas. Se trata de un dispositivo, aprobado inicialmente para el cierre del *ductus* arterioso permeable, que es autoexpandible y está hecho con una malla de alambre de nitinol. Dispone de un disco de retención por un lado, que suele ser 2 mm mayor que el diámetro del dispositivo. Cuenta con una malla de dacrón para facilitar la trombosis y el cierre total de la fístula. Sus mayores ventajas son la posibilidad de recolocación, una gran variedad en el tamaño del dispositivo, el pequeño grosor del catéter de liberación y el alto porcentaje de cierre completo que se consigue usando este dispositivo, junto con una mortalidad nula. En ausencia de comunicaciones previas similares en la literatura médica, nosotros demostramos su utilidad en asociación con *coils* en el cierre de una anomalía arterioarterial compleja.

BIBLIOGRAFÍA

1. Senno A, Schweitzer P, Merrill C, Clauss R. Arteriovenous fistulas of the internal mammary artery: review of the literature. *J Cardiovasc Surg (Torino)* 1975;16:296-301.
2. Burchell HB, Clagett OT. The clinical syndrome associated with pulmonary arteriovenous fistulas including a case report of a surgical cure. *Am Heart J* 1947;34:151-62.
3. Stafford RW, Kronenberg MW, Dumbar JD, Wolley CF. Continuous precordial murmurs due to internal mammary artery fistulas: including internal mammary to pulmonary artery fistulas. *Am J Cardiol* 1969;24:414-9.
4. Brundage BH, Gómez AC, Cheitlin MD, Gmelich JT. Systemic artery to pulmonary vessel fistulas: report of two cases and a review of the literature. *Chest* 1972;62:19-23.
5. Greenberg BH, Stasikowski JJ, Harrison CE Jr, Mc Goon DC. Epicardial artery-pulmonary artery fistula: presentation as a continuous precordial murmur. *Am J Cardiol* 1968;22:893-7.
6. Cohen EM, Loew DE, Messer JV. Internal mammary arteriovenous malformation with communication to the pulmonary vessel. *Am J Cardiol* 1975;35:103-6.
7. Lodovici F, Ebagosti A, Escogido H, Jouven JC, Kosbarian C, Houel J, et al. A rare cause of continuous thoracic murmur. A fistula between the internal mammary artery and the pulmonary circulation. *Arch Mal Coeur Vaiss* 1978;71:827-30.
8. Dunn RP, Wexler L. Systemic-to-pulmonary fistula in intrapulmonary Hodgkin's disease. *Chest* 1974;66:590-4.
9. Saito T, Matsuda M, Yamaguchi T, Matsuzaki T, Nakagawa S, Akatsuka N. A case of a traumatic systemic-pulmonary arteriovenous fistula. *Jpn Heart J* 1975;16:196-203.
10. Arvay A, Csákany G, Tomory E. Systemic arterial pulmonary arterial communication in a case of Fallot's pentalogy. *Acta radiol Diagn (Stockh)* 1965;3:151-5.
11. Robinson MD, David C, Sobiston Jr MD. Syndrome of congenital internal mammary-to-pulmonary arteriovenous fistula associated with mitral valve prolapse. *Arch Surgery* 1981;10:1265-73.
12. Wang WB, Joung MS, Ding YA. Internal mammary artery to pulmonary artery fistula associated with sick sinus syndrome: report a case. *J Formos Med Assoc* 1992;91:635-8.
13. Pryce DM, Sellars TH, Blain LG. Intralobar sequestration of lung associated with an abnormal pulmonary artery. *Br J Surg* 1947; 35:18-29.
14. Sanders F, Hearne MD, Mahlon K, Burbank MD. Internal mammary artery-to-pulmonary artery fistulas. *Circulation* 1980;62:1131-5.