

Ductus arterioso permeable asociado con colaterales aortopulmonares toracoabdominales: presentación de un caso en etapa neonatal

ADRIAN ALLARIA, SUSANA RODRIGUEZ, LIDIA GALINA, M. TERESA GOMEZ, GLADYS SALGADO, LUIS JMELTNISKY, ALBERTO SCIEGATA (H), HORACIO FAELLA

RESUMEN

Se presenta el caso de un paciente neonatal con asociación de ductus arterioso persistente y colaterales aortopulmonares toracoabdominales que producían insuficiencia cardíaca congestiva. Luego de la ligadura del ductus arterioso se detectaron dos vasos anómalos originados en la proximidad del nacimiento de la arteria subclavia izquierda y un tercero a nivel del origen del tronco celíaco. Inicialmente la colateral infradiafragmática se detectó por ecografía Doppler y luego se confirmó en el cateterismo cardíaco. El retorno venoso pulmonar fue normal. La embolización de los tres vasos anómalos se realizó exitosamente en forma total por intermedio de *coils* en el mismo cateterismo. *REV ARGENT CARDIOL* 2000; 68: 597-601.

Palabras clave Conducto arterioso persistente - Cardiopatía congénita - Cateterismo cardíaco - Ecocardiograma bidimensional - Malformación arterial - Secuestro pulmonar

INTRODUCCION

En asociación con la persistencia del conducto arterioso pueden presentarse vasos arteriales anómalos aortopulmonares que provocan persistencia de hipertensión pulmonar y/o insuficiencia cardíaca por sobrecarga de las cavidades izquierdas. (1-7) Se comunica el manejo interdisciplinario en el diagnóstico y el tratamiento exitoso de un caso neonatal de ductus arterioso persistente asociado con colaterales aórticas toracoabdominales.

PRESENTACION DEL CASO

Recién nacido (RN) pretérmino, de 34 semanas de gestación y 2.350 g de peso, internado a los 37 días por dificultad respiratoria y apneas obstructivas en el curso con diagnóstico de neumonitis por virus sincitial respiratorio (RSV). Por insuficiencia respiratoria creciente, se deriva a la terapia neonatal del hospital para asistencia respiratoria mecánica con ventilación de alta frecuencia (VAF). A la auscultación presenta soplo sistólico 3/6 en mesocardio, taquicardia, pulsos periféricos presentes amplios y regular perfusión periférica. El diagnóstico al ingreso

es: 1. Neumonitis por RSV. 2. Cardiopatía congénita acianótica con hiperflujo pulmonar. El ECG mostraba ritmo sinusal, hipertrofia del ventrículo izquierdo. En el ecocardiograma Doppler color se observaron la aurícula y el ventrículo izquierdos severamente dilatados, con función conservada, ductus de 2 mm con *shunt* de izquierda a derecha y aorta bicúspide. Se indica la ligadura quirúrgica del ductus. La edad del paciente es de 2 meses y su peso, de 2.800 g.

Detalles operatorios

Abordaje mediante una toracotomía lateral izquierda, se observó presencia de vasos anómalos a nivel del cuarto espacio intercostal; pero no se pudo definir con claridad su recorrido y distribución dada la presencia de adherencias pleurales organizadas. Se observó un conducto arterioso permeable de aproximadamente 4 mm de diámetro sobre el cual se palpaba frémito sistólico severo. Se procedió a su cierre mediante ligadura doble, con persistencia de frémito sobre la arteria pulmonar, supuestamente en relación con los vasos descriptos en la toracotomía. Se solicitó una ecografía abdominal que en distintos

Servicios de Cirugía Cardiovascular, Neonatología, Imágenes, Cardiología y Hemodinamia, Hospital de Pediatría Prof. Dr. J. P. Garrahan, Buenos Aires, Argentina

Trabajo recibido para su publicación: 3/00 Aceptado: 5/00

Dirección para separatas: Dr. Adrián Allaria, Cirugía Cardiovascular, Hospital de Pediatría Prof. Dr. J. P. Garrahan, Pichincha 1881, (1245) Buenos Aires, Argentina



Fig. 1. Ecografía abdominal: corte a nivel epigástrico transversal donde es posible observar la emergencia a nivel del tronco celíaco de un vaso arterial anómalo (VA). Se observa la emergencia de la arteria hepática (H), de la esplénica (ESP) y el vaso anómalo (VA) que se dirige hacia la izquierda de la columna (COL) y hacia adelante (flecha). Se observa la vena cava inferior (VCI).

cortes transversos seriados a nivel del epigastrio mostró la presencia de un vaso anómalo a nivel del tronco celíaco. A ese nivel se observó el nacimiento de un vaso arterial anómalo que, originándose en

proximidad al tronco celíaco, describía un trayecto ascendente hasta colocarse a la izquierda de la aorta y que en su recorrido se dirigía hacia la base del pulmón izquierdo luego de atravesar el diafragma (Fi-

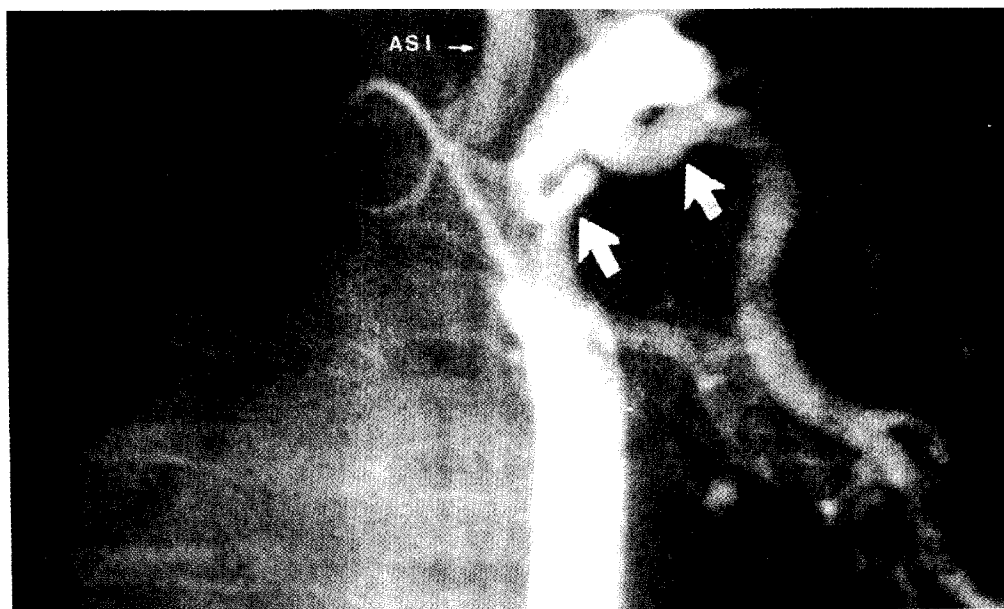


Fig. 2. Aortografía en la aorta transversa donde se observa la emergencia de dos vasos colaterales aórticos (flechas) en la proximidad del origen de la arteria subclavia izquierda (ASI).

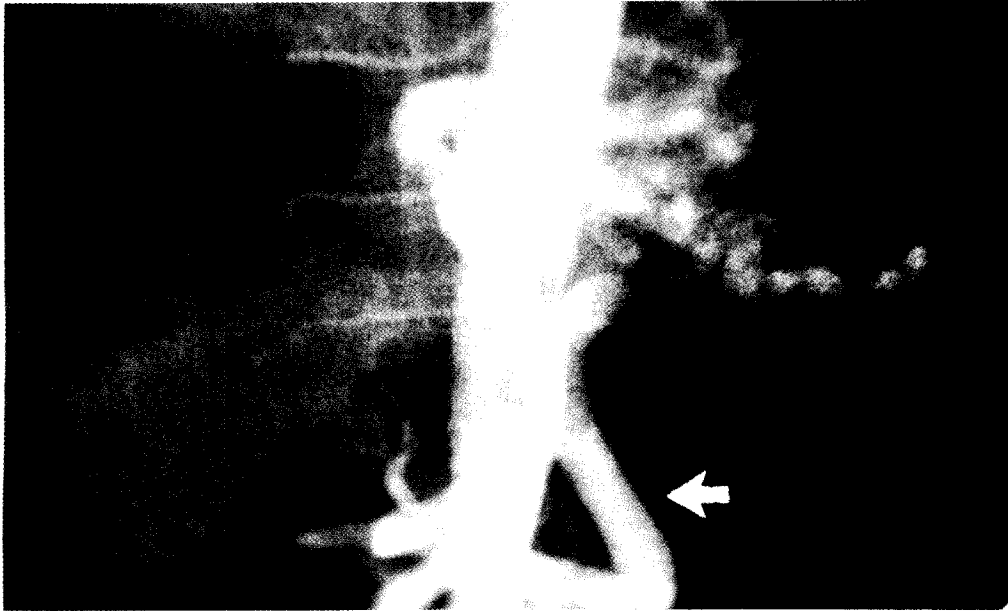


Fig. 3. Aortograma abdominal: se observa el nacimiento de los vasos del tronco celíaco y el vaso anómalo de dirección ascendente hacia la base del pulmón izquierdo.

gura 1). El modo Doppler, en un corte paramedial izquierdo a nivel del epigastrio, demostró señal positiva de flujo arterial sobre el vaso anómalo descrito. Sobre la base de la descripción de vasos colaterales anómalos en la pared torácica, los hallazgos de la ecografía abdominal, los signos auscultatorios y la persistencia de soplo continuo, se indicó el estudio angiográfico. Por aortografía retrógrada, el disparo en la aorta transversa y la aorta descendente

de tres colaterales aórticas, mostró: dos con origen en la proximidad del nacimiento de la subclavia izquierda (Figura 2) y una tercera a la altura del nacimiento del tronco celíaco, coincidente con los hallazgos ecográficos (Figura 3). Las tres colaterales aórticas terminaban en el parénquima pulmonar, observándose en levofase el retorno venoso pulmonar normal hacia las cavidades izquierdas. Se realizó oclusión de los tres vasos anómalos mediante la in-

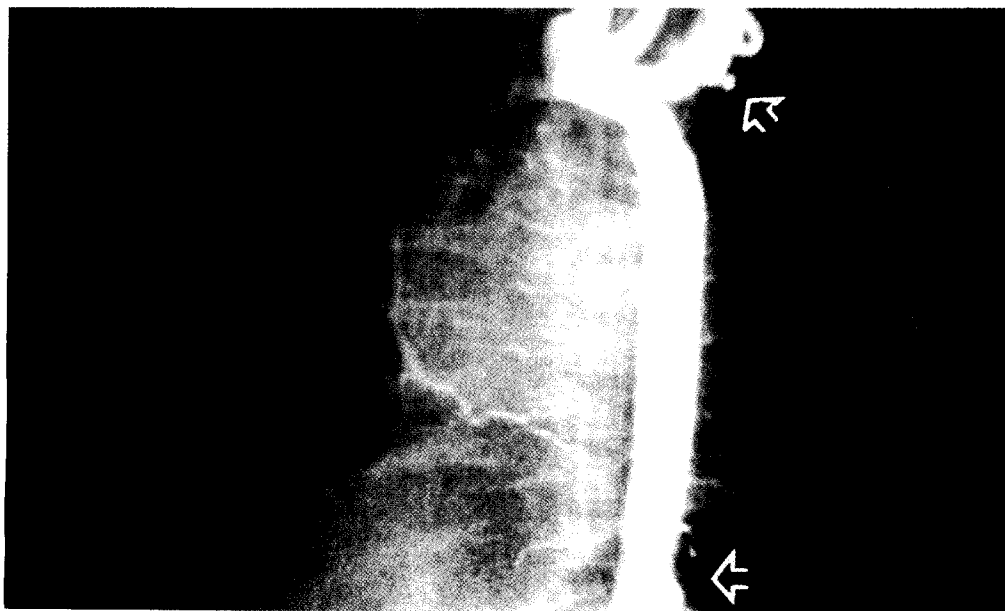


Fig. 4. Aortografía que muestra la oclusión exitosa mediante coils de los vasos colaterales aórticos sin flujo residual.

serción de *coils*. La arteriografía en la aorta confirmó la oclusión total exitosa de los tres vasos mediante embolización con *coils*, sin flujo residual (Figura 4). El seguimiento a un año no mostró signos de compromiso clínico.

DISCUSION

Las malformaciones arteriales pulmonares pueden presentarse asociadas con patología intracardiaca o extracardiaca. (1-7) El caso que aquí se comunica no es en sentido estricto un secuestro, ya que éste se define como la presencia de una zona de parénquima pulmonar no funcional que recibe su aferente arterial de vasos originados en vasos sistémicos anómalos. Othersen Jr. y colaboradores (7) engloban los casos informados de secuestro pulmonar asociados con distintas malformaciones de irrigación sistémica aórtica y/o colaterales bronquiales, las cuales pueden presentarse con drenaje venoso pulmonar normal o anómalo como en el caso del síndrome de la cimitarra, dentro de lo que estos autores denominan en forma amplia al conjunto de estas anomalías arteriales pulmonares con la expresión "espectro del secuestro pulmonar".

Loser y colaboradores, (2) en 1975 describieron la presencia de vasos aberrantes pulmonares originados en la aorta abdominal en 10 pacientes. En cinco de ellos (50%) coexistía secuestro pulmonar. Las colaterales sistemicopulmonares, desde el punto de vista embriológico, se originan en las arterias intersegmentarias primitivas, las cuales están presentes en el embrión en la cuarta semana del período embrionario. Las anastomosis de éstas a nivel hiliar soportan la hipótesis de que son remanentes de las segmentarias, contemporáneas de la etapa de alineación conoseptal y la formación del *loop* ventricular.

En 1979, Goldstein y colaboradores (4) describieron los hallazgos necrópsicos en un neonato de término que falleció a los tres días de vida, en quien una malformación vascular produjo hipertensión pulmonar severa. En 1988, Marianeschi y colaboradores (1) publicaron una amplia revisión sobre malformaciones arteriovenosas pulmonares en la que demostraron la eficacia de la ecografía contrastada. Estos autores promueven el uso de solución salina agitada en catéter periférico del miembro superior o central ubicado en la arteria pulmonar, con el registro de la ecografía en los planos subcostal, paraesternal y supraesternal. Las microburbujas pasan normalmente el lado derecho del corazón y quedan atrapadas en el parénquima pulmonar. En los casos en que éstas "saltan" el pulmón a través de malformaciones arteriovenosas, aparecen en cavidades izquierdas tal como fuera descrito por Schraufnagel y Kay en 1996. (6) Grady y colaboradores, (7) en 1994 comunicaron el primer caso neonatal de oclusión por cateterismo

de malformaciones arteriovenosas, recomendando el tratamiento por embolización como "de elección" para el tratamiento de las malformaciones vasculares pulmonares.

Rabinovitch y colaboradores, (8) en 1981 presentaron un análisis profundo basado sobre hallazgos de autopsia de casos de tetralogía de Fallot con atresia pulmonar y sin ella. Las arterias descritas en el presente caso se pueden comparar con aquellas que Rabinovitch describió como "colaterales directas aórticas" y sus anastomosis hiliares. Este estudio mostró como hallazgos histológicos que estas colaterales presentan una capa muscular que es reemplazada a nivel hiliar en el sitio de anastomosis por una capa elástica, observándose hiperplasia de la íntima con distinto grado de obstrucción de su luz. Este mecanismo produciría un efecto protector sobre el impacto del flujo con presión sistémica sobre la vasculatura pulmonar más allá de su anastomosis. Sobre la base de los resultados obtenidos y de la revisión de casos es posible considerar que el tratamiento por embolización en casos seleccionados se muestra eficaz para el tratamiento de las malformaciones arteriales pulmonares.

SUMMARY

PATENT DUCTUS ARTERIOSUS AND THORACOABDOMINAL AORTOPULMONARY COLLATERALS: CASE REPORT IN A NEONATE

A case of persistent ductus arteriosus associated with thoracoabdominal pulmonary collaterals causing congestive heart failure in a neonate is reported. Two anomalous vessels arising from the aorta, close to the origin of the subclavian artery, and a third vessel arising near the truncus celiacus were detected after initial ductus ligation. Initially an infradiaphragmatic aortopulmonary collateral was detected by echo Doppler ultrasound, and confirmed during cardiac catheterization. Pulmonary venous return was normal and embolization with coils was possible with total successful occlusion of the collateral vessels.

Key words Patent ductus arteriosus - Congenital cardiac disease - Cardiac catheterism - Echocardiography - Arterial malformation - Pulmonary sequestration

BIBLIOGRAFIA

1. Marianeschi SM, McElhinney DB, Reddy M. Pulmonary arteriovenous malformations in and out of the setting of congenital heart disease. *Ann Thorac Surg* 1998; 66: 688-691.
2. Loser H, Apitz J, Schmaltz AA y col. Aberrant pulmonary vessels from the abdominal aorta in children with congenital

- tal heart disease. *Rofo Fortschr Geb Rontgenstr Nuklearmed* 1975; 123: 40-45.
3. Goldstein JD, Rabinovitch M, Van Praagh R y col. Unusual vascular anomalies causing persistent pulmonary hypertension in a newborn. *Am J Cardiol* 1979; 43: 962-968.
 4. Finci L, Maendly R, Essinger A y col. Internal mammary arteriovenous fistula. *Am J Cardiol* 1984; 54: 1160-1163.
 5. Othersen B Jr. Malformaciones pulmonares y bronquiales. *Texto de Cirugía Pediátrica* (2ª ed). Editorial Interamericana McGraw-Hill 1995; cap 17, pp 182-194.
 6. Schraufnagel DE, Kay JM. Structural and pathologic changes in the lung vasculature in chronic disease. *Clin Chest Med* 1996; 17: 1-13.
 7. Grady RM, Sharkey AM, Bridges ND. Transcatheter coil embolisation of a pulmonary arteriovenous malformation in a neonate. *Br Heart J* 1994; 71: 370-371.
 8. Rabinovitch M, Herrera de León V, Castañeda AR y col. Growth and development of the pulmonary vascular bed in patients with tetralogy of Fallot with or without pulmonary atresia. *Circulation* 1981; 64: 1234-1248.