

HOSPITAL DOCENTE ANTITUBERCULOSO DE LA
HABANA

Aneurisma por fistula arteriovenosa pulmonar

Informe de un caso

Por los Dres.:

LUISA DE ARMAS PÉREZ,¹² ENRIQUE BARRERAS
MIRANDA,¹³
ARMANDO ALONSO PRADO,¹⁴ LUIS LLERENA
ROJAS¹⁵

de Armas Pérez, L. et al. *Aneurisma por fistula arteriovenosa pulmonar. Informe de un caso.* Rev Cub Med 14: 6, 1975.

Se presenta el caso de un paciente a quien se diagnostica un aneurisma con fistula arterio-venosa del pulmón, entidad nosológica poco usual, según informes registrados en la literatura médica mundial. La forma clínica del comienzo, fue con esputos hemoptoicos nuevos. En un paciente joven, pueden confundirse con tuberculosis pulmonar, cardiopata mitral y otras enfermedades con una presentación similar. La imagen radiológica puede también hacer sospechar que se trata de un proceso neofornativo pulmonar. Pudo establecerse el diagnóstico a través de un buen examen físico, el fonocardiograma y el angiocardiorama. Se destacan los cambios hemodinámicos que aparecieron en el paciente. Se señalan también los signos físicos importantes tales como: la cianosis generalizada, hipocratismo de los dedos y presencia del sonlo torácico extraradial que en gran manera contribuyeron a sospechar el diagnóstico. Se realizó tratamiento quirúrgico en este paciente, como está recomendado, y se obtuvieron resultados favorables.

INTRODUCCION

La fistula arteriovenosa del pulmón, también denominada hemangioma cavernoso, se caracteriza por la existencia de mezcla de sangre arterial y sangre venosa.

Esta entidad nosológica fue descrita por primera vez por *Churton* en 1897, y se realizó la primera intervención por *Shens-tone* en 1940. Si el primer informe lo hicieron *Hepburn* y *Daunhinee* en 1912.^{1,2}

Se trata de una malformación congénita poco frecuente, que puede ser única en un 50% de los casos.² *Moore* en una serie de pacientes estudiados, encuentra casi el doble de casos con fistula única.³

La localización anatómica más frecuente es el lóbulo inferior.^{3,4}

Se describe que se acompaña, casi invariablemente, de telansectasia hemorrágica, y que el antecedente familiar es importante; *Manseur* encontró una historia familiar en el 16% de los casos; y *Sluiter* en una serie de 27 pacientes estudiados, 18 eran pertenecientes a una familia que padecía de un síndrome Rendu-Osler-Weber.⁵ La sintomatología más frecuente que presentan es: disnea (por hipoxia), epistaxis,

¹² Médico residente del hospital antituberculoso de La Habana, "Julio Trigo". Carretera de Bejucal s/n.

¹³ Jefe del departamento de radiología del hospital docente antituberculoso de La Habana, "Julio Trigo".

¹⁴ Cirujano del hospital docente antituberculoso de La Habana, "Julio Trigo".

¹⁵ Radiólogo del hospital docente "Comdte. Manuel Fajardo", Zapata y D, Vedado, Habana.

hemoptisis (en pacientes con gran derivación arteriovenosa), y manifestaciones nerviosas cerebrales, tales como: cefaleas, vértigos, síncope, convulsiones, parestias, que pueden observarse hasta en el 33% de los enfermos;⁶ y que se deben fundamentalmente a hipoxia cerebral. Los signos físicos más ostensibles son la cianosis, el hipocratismo de los dedos de las manos y pies y la presencia de soplo torácico extracardiaco. Las complicaciones pueden ser locales, tales como la ruptura y pleuritis adhesiva; secundarias a la policitemia, como la endocarditis bacteriana subaguda y la trombosis cerebral; y hemorrágicas como la epistaxis y la hemoptisis.²⁷

INFORME DEL CASO

Paciente O.O.B., sexo masculino, raza blanca y 39 años de edad; fue admitido en el hospital "Julio Trigo" el día 14 de junio de 1972 por haber presentado esputos hemoptoicos, con antecedentes de haber padecido de asma bronquial que desapareció hace 15 años aproximadamente, sin haber realizado tratamiento alguno. Tres semanas antes de su ingreso en el hospital, sintió un cosquilleo retroesternal y al toser expulsó un pequeño coágulo de sangre. Este hecho se repitió en dos oportunidades más al día siguiente, y decidió visitar un policlínico donde le realizaron tres exámenes directos de esputo con resultados negativos, y se le realizó una radiografía de tórax, donde apareció una sombra pulmonar, por lo que fue decidido su ingreso para estudio y tratamiento.

En los antecedentes patológicos personales y familiares no se encontraron datos de interés.

Al interrogatorio refirió disnea a los grandes esfuerzos físicos en ocasiones, palpitations esporádicas, pirosis, y cefaleas frecuentes. Al examen físico encontramos: cianosis generalizada discreta de piel y mucosas, uñas en

vidrio de reloj con presencia de dedos hipocráticos de manos y pies. Aparato respiratorio: tórax xifoesciolítico. Se auscultó un soplo continuo grado 11/VI en las líneas media y anterior axilar de la región basal derecha. El resto de los aparatos y sistemas no aportó datos de interés.

EXAMENES COMPLEMENTARIOS

Informe de la radiografía de tórax inicial : escoliosis dorsal derecha.

Proceso de condensación de aspecto tumoral; forma de tres nodulos adyacentes y parcialmente superpuestos que ocupan la base del pulmón derecho. En el informe de la vista lateral derecha se lee: los nodulos a que se hace referencia ocupan la región basal derecha, y aparecen supuestos, lo que constituye una imagen única de mayor opacidad. Llama la atención la existencia de cordones cilindricos de 1 cm de ancho que, partiendo de las imágenes nodulares, llevan la dirección del hilio, y obligan al planteamiento de posibilidad de aneurisma arteriovenoso. Debe descartarse una neoplasia pulmonar o un aneurisma por fístula arteriovenosa del pulmón. Serología: negativa; orina: normal; heces fecales: negativo; glicemia y urea: normales; Hb: 17.3 gm %; Hto: 53 vols. %; 6 500 leucocitos con un conteo diferencial normal; eritrosedimentación 5 mm. Se le realizaron estudios bacteriológicos de esputos, y se encontró la flora normal. En los tres exámenes directos seriados del esputo se obtuvo codificación 0. Los estudios citológicos de las muestras del esputo fueron informados como negativos de células neoplásicas.

17 de junio de 1972: tórax con maniobras de Valsalva y Muller. No se aprecia variación apreciable al realizar las maniobras.

Quimograma: No se aprecia latido definido en la sombra basal derecha.

20 de junio de 1972: *angiocardiograma*. Se comprueba la existencia de dos sacos aneurismáticos en la base derecha: uno de ellos binoculado de 6 x 5 cm de diámetro; y otro de 2 cm de diámetro que drenan por dos gruesas venas que se reúnen en una sola en la aurícula izquierda. Se trata de un aneurisma arte rio venoso pulmonar de base derecha.

A pesar de los resultados de esta última investigación, y con el fin de tener un mejor conocimiento de las patologías que pudieran estar asociadas, se realizaron otras investigaciones que se relatan a continuación.

23 de junio de 1972: *Telecardiograma*. Rectificación del arco medio izquierdo en la vista frontal, y discreta prominencia del cono de la pulmonar en la Alista O.A.D. No hay aumento apreciable del área cardiaca. En la O.A.I. se observa la imagen nodular basal anterior derecha.

Pruebas funcionales respiratorias. Conclusiones: paciente con una capacidad vital que llega al 110% y una capacidad máxima respiratoria al 99%, lo que representa cifras plenamente normales. La mecánica respiratoria, representada por el volumen respiratorio forzado a 0,75 segundos está al 100%, con un máximo V. flujo medio Esp. al 74% y una capacidad vital cronometrada al primer segundo 77%, que se puede considerar muy cerca de lo normal.

Hay una insaturación en reposo al 70% que mejora, al ejercicio, al 83%, explicables, posiblemente por la hiperventilación y nuevas áreas de intercambio gaseosos. Bajo la acción del oxígeno al 100% durante 20 minutos, no alcanza el 100%; sólo llega a un 97,5%, planteándose la existencia de una anastomosis, posiblemente por un corto circuito anatómico con el consiguiente aumento de sangre venosa insaturada en circulación sistemática.

Fonocardiograma: soplo continuo de pequeña intensidad en línea auxiliar anterior 5to. E.I.C.D.

E.E.G.: ritmo y frecuencia normales. Posición eléctrica vertical A.Q.R.: 90°. No signos de daño miocárdico. Trazado con complejos normales.

Vectocar dio grama: crecimiento ventricular izquierdo.

29 de junio de 1972: *broncografía derecha*. La broncografía derecha es prácticamente normal. Sólo se comprueban muy escasas dilataciones cilíndricas de las ramas adyacentes a la imagen de aneurisma basal derecho; estos bronquios corresponden a ramas del lóbulo medio.

22 de julio de 1972: *Tomografía derecha AP y LD*. Se aprecian las imágenes nodulares basales derechas y se observa una extraordinaria red vascular en la base del pulmón derecho; son poco visibles los dos cordones venosos que han sido identificados en los exámenes simples y en la angiocardiografía.

Tomografía lateral derecha. En cortes superficiales y medios, y aun en los más profundos, se aprecia el saco aneurismático en la región basal media del pulmón derecho, aunque con mayor nitidez en corte a 6 cm. A partir de la imagen nodular se aprecian vasos de dirección biliar.

2 de agosto de 1972: *Determinación de la volemia con Cr. 51*.

Ht: periférico: 55%; corregido 53%; orgánico 49%. Volemia normal: 4 240 mg; volumen globular: 2 472 mg; volumen plasmático: 2 572 mi; volemia: 5 011 mi; kg/peso: 87,4 índice masa globular 1, 2.

Evoluciona favorablemente y se decide su intervención quirúrgica; se plantea una lobectomía inferior derecha. Se le realizan nuevas investigaciones preoperatorias: HB: 17,8 g %; Ht: 55 vol %; leucocitos 7 500 x mi³ con conteo diferencial normal. El coagulograma simple se encontró dentro de límites normales.

Fue operado el día 8 de agosto de 1972. Resumen del informe operatorio: Se penetra en

tórax por 6to. espacio a la exploración. En lóbulo superior nódulo de aspecto TB en vértices, zona de confluencia nodular adherida firmemente al vértice. Lóbulo inferior libre. Lóbulo medioportador del aneurisma, con adherencias al diafragma. Las paredes del hemitórax con zonas de pequeñas telangetasias; todos los vasos venosos parietales aumentados de diámetro. Alguna circulación colateral complementaria. El aneurisma tiene el tamaño de unos

6 cm de diámetro, animado de latidos y se ve la circulación en remolino a través de su pared. Se realiza lobectomía media con las pinzas UKL-60 y ligadura en bloque. Se dejan drenajes en cavidad y se cierra por planos.

Los períodos pre y posoperatorios se desarrollaron sin problemas para el paciente.

El informe anatomopatológico concluye: doble rama arterial del pániculo con gran dilatación aneurismática intraparenquimatosa. Congestión venosa e intracapilar por zonas. Aumento moderado de venas. Zonas de esclerosis de los tabiques interalveolares.

DISCUSION

El grado de hipoxemia conduce a estos pacientes a una policitemia con aumento del volumen plasmático y celular, como puede verse en nuestro paciente.

La derivación arteriovenosa de derecha a izquierda provoca la cianosis e hipoxemia, en reposo, que mejora muy discretamente el ejercicio, al parecer por hiper-ventilación, y que no se normaliza al respirar (O_2 al 100% durante 20 minutos).^{2-4>7} Sin embargo, algunos autores refieren, que aunque se hiperventile al paciente, no se mejora la saturación de O_2 en sangre arterial.^{8,9} Es curioso que en estos pacientes se encuentran cifras discretamente elevadas del pH sanguíneo^{8,10} y la presión arterial del O_2 se encuentra ligeramente descendida;^{8,9,10} hasta el presente se desconoce el mecanismo de ello.

La función cardiaca se encuentra dentro de límites normales o puede hallarse una hipertrofia ventricular izquierda.¹¹

La resistencia vascular pulmonar suele estar aumentada.¹⁰ En el caso que presentamos no fue posible realizar el cateterismo cardiaco por encontrarse esclerosados los vasos de ambos brazos a consecuencia del contraste utilizado para el angiocardio-grama.

Fueron de gran utilidad para el diagnóstico los antecedentes personales y familiares, la presencia de un soplo torácico extracardiaco y la comprobación clínica, a través del fonocardiograma y la angiocardiografía. Del caso en estudio fueron examinados los padres y hermanos y resultaron negativas las investigaciones.

No se realizó en este paciente una laparoscopia en busca de telangiectasias en hígado y bazo, por considerarla innecesaria, ya que no presentaba manifestaciones cutáneas y dicha investigación lleva implícito cierto riesgo.

Se descartó la policitemia vera y un síndrome Rendu-Osler-Weber por ausencia de otros signos clínicos detectados mediante investigaciones realizadas.

El tratamiento de estos pacientes es quirúrgico, previa valoración individual. La presencia de múltiples fistulas, contraindica la intervención. Es aconsejable realizar angiocardiograma bilateral para descartar pequeñas lesiones que a veces pasan inadvertidas en una radiografía simple de tórax.^{4,5} Se recomienda respetar el mayor parénquima posible¹⁻ y las intervenciones más frecuentes son la lobectomía y la segmentectomía.

Biancalama considera que, en pacientes jóvenes no cianóticos, debe diferirse la intervención hasta que aparezcan síntomas como hemoptisis, etc.

Nosotros consideramos que, valorando el alto riesgo de serias complicaciones, entre ellas la ruptura del aneurisma o un cuadro cerebral agudo, como el absceso cerebral o una trombosis, bien vale la pena, una vez diagnosticado y correctamente valorado, tomar una conducta quirúrgica inmediata.

El pronóstico, una vez intervenido el paciente, es muy favorable. *Biancalama* siguió varios pacientes por un período de tiempo que osciló entre 2 y 10 años, y en ninguno se informó reproducción de la lesión, ni hubo fallecidos. El paciente objeto de este estudio fue intervenido con una buena evolución durante el período posoperatorio.

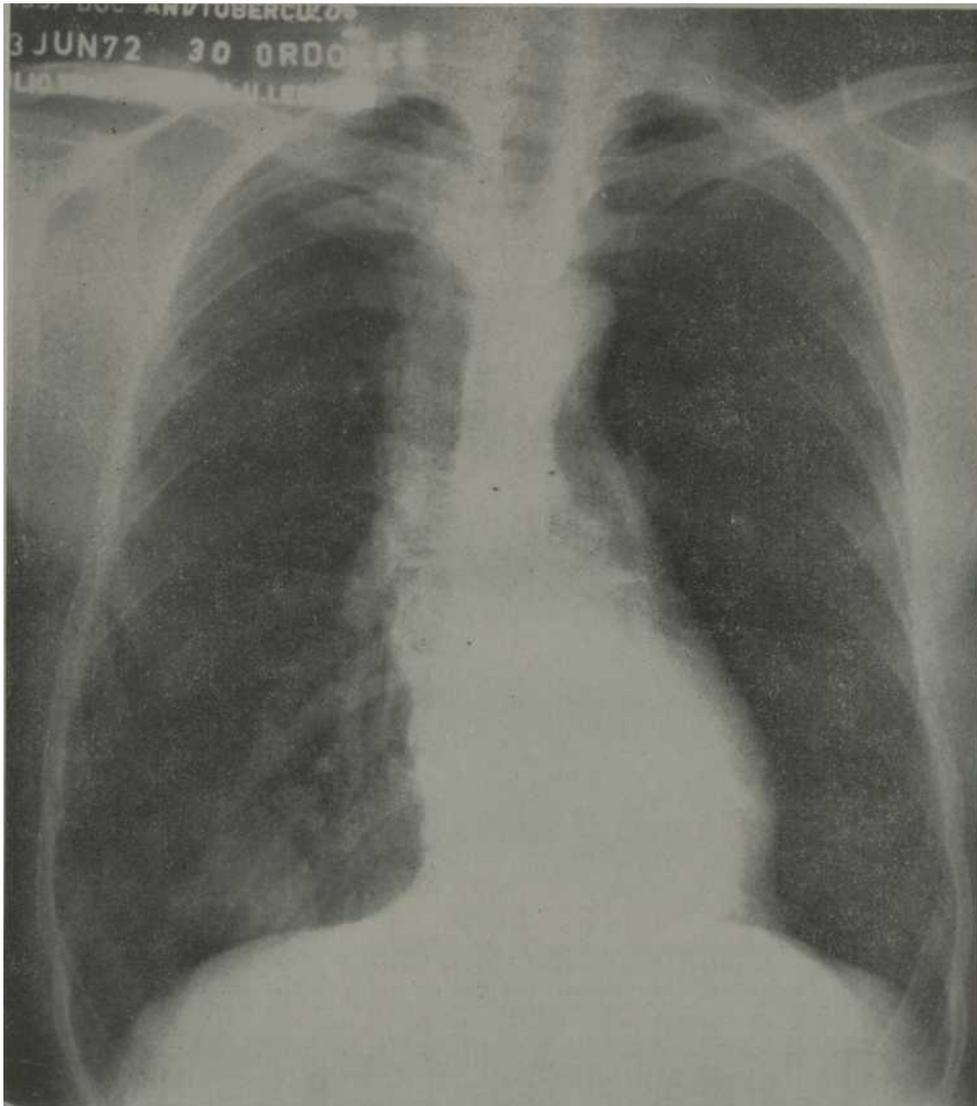


Figura I. Frontal: Imágenes de sombras de formas redondeadas, de distintas densidades, superpuestas en la base del pulmón derecho. Cordones gruesos de opacidad unen las imágenes al hilo.

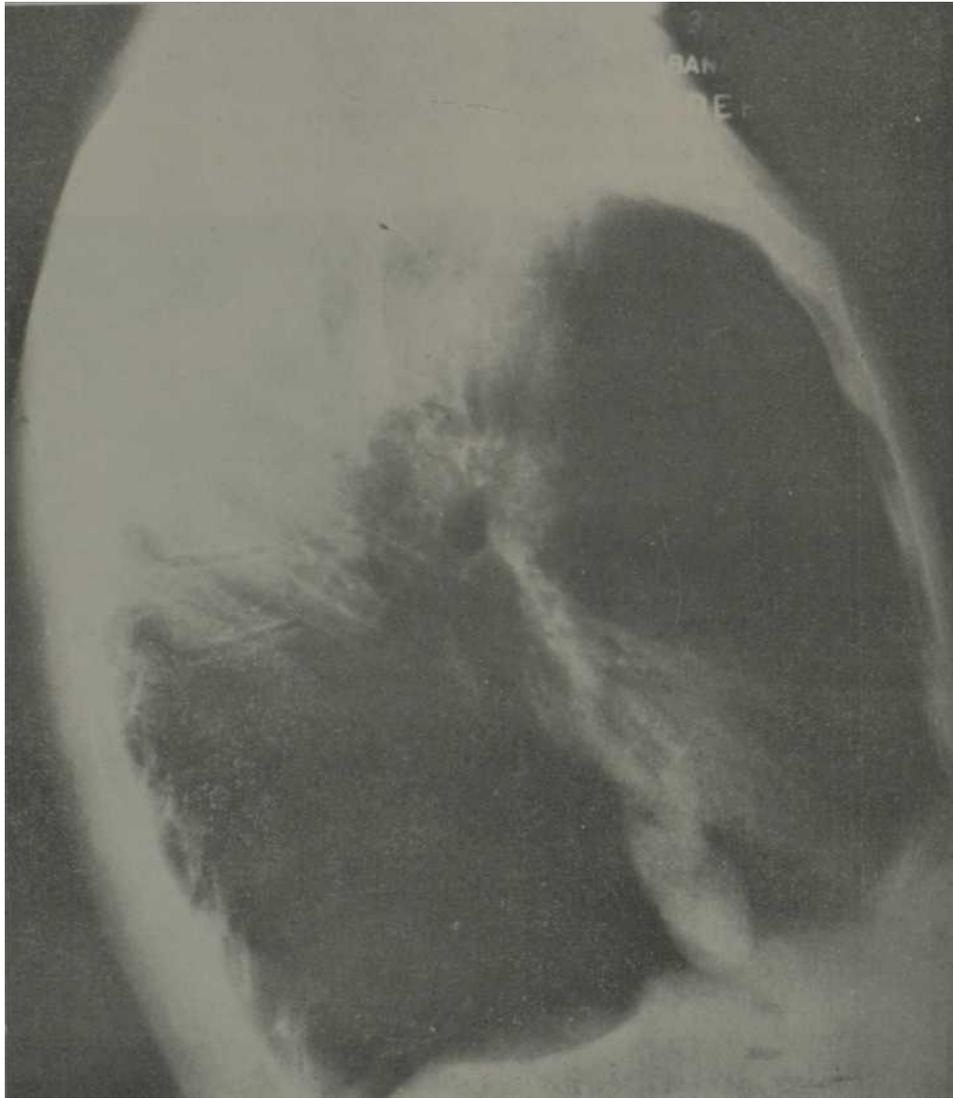
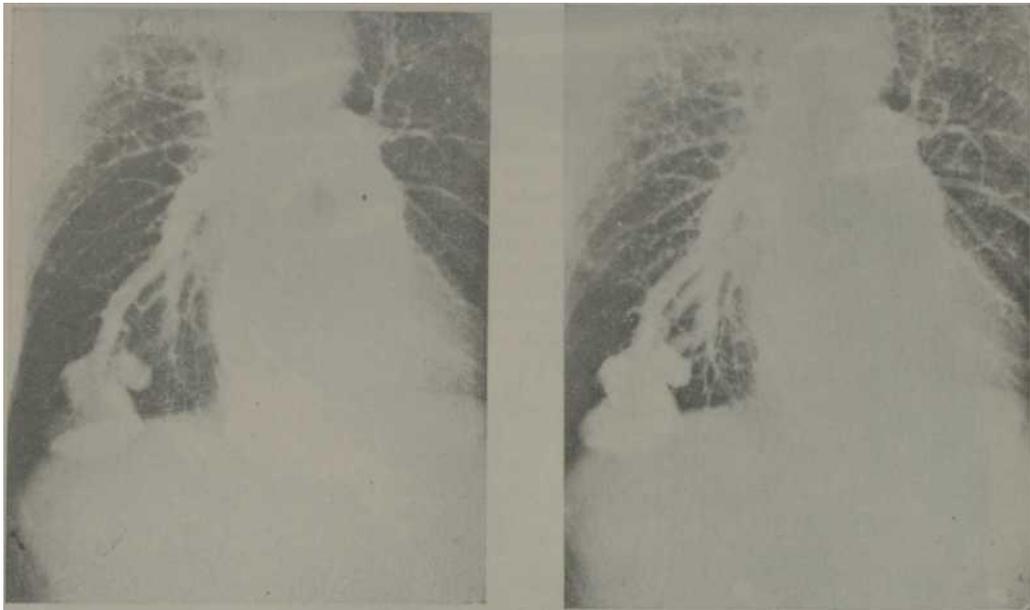


Figura 2. Lateral: Las imágenes de opacidad basal se proyectan en territorio anterior de la base derecha; los gruesos cordones vasculares que las unen al hilio son muy visibles.



Figures 3 y 4. Angiocardiograma seriado: En la fase pulmonar del angiocardiograma se aprecian gruesas arterias, ramas de la pulmonar que opacifican las formaciones básicas. Del saco aneurismático parten venas comunicantes.

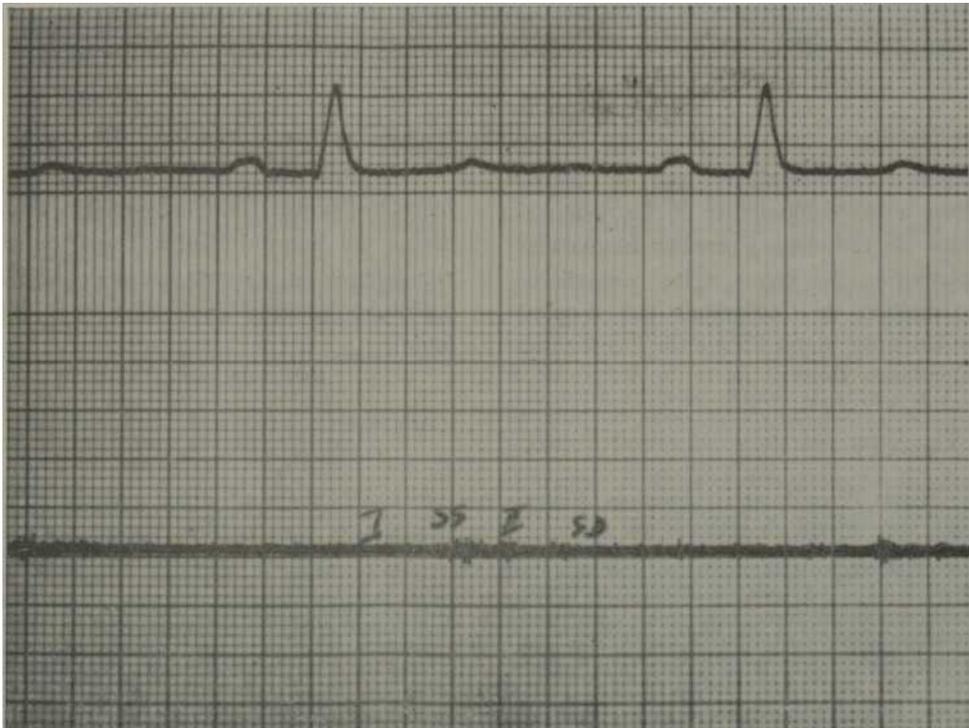


Figura 5. Fonocardiograma: Se observa el registro del pequeño soplo pulmonar del aneurisma.

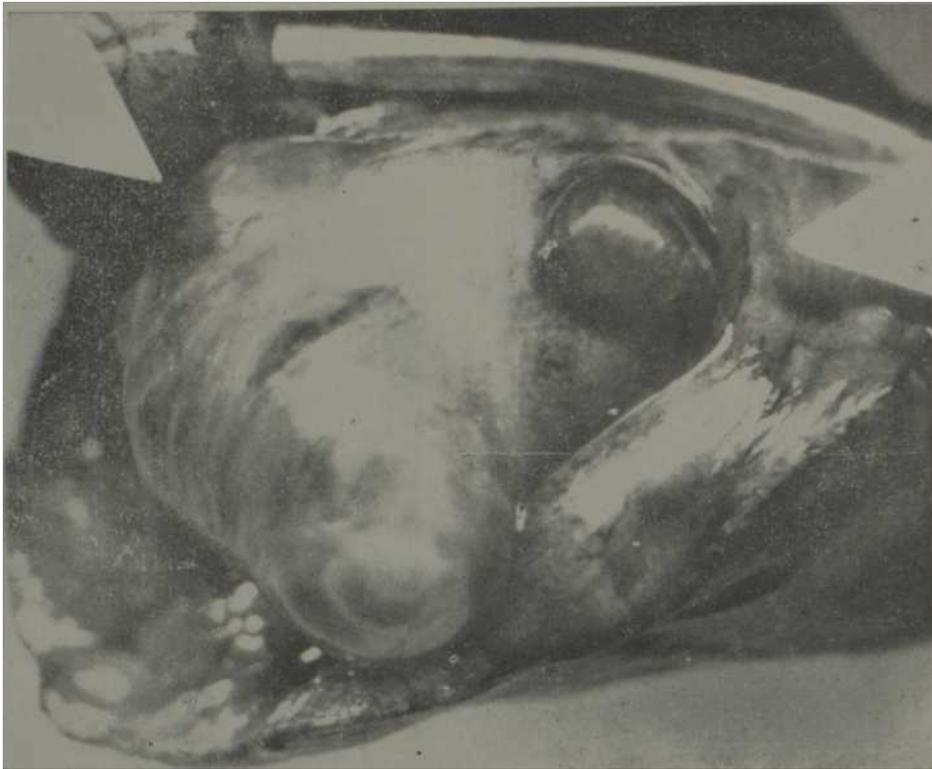


Figura 6. Fotografía de la pieza quirúrgica donde se observan las dilataciones aneurismáticas.

Agradecimiento

Nuestro reconocimiento por su contribución a los compañeros de los departamentos de radiología, pruebas funcionales respiratorias, así como a los compañeros del Instituto de Cardiología del hospital "Comandante Manuel Fajardo". Así como también al doctor *Meneses*

Maña, patólogo del hospital "Julio Trigo", al doctor *Rafael O. Pedraza*, jefe del servicio de medicina del hospital "Julio Trigo" y a los compañeros del departamento de radioisótopos del Instituto de Radiología y Oncología.

SUMMARY

ATM^a\Perez, L et al. *Aneurysm due to a lung arteriovenous fistula. A report of one case.* Rev Cub Med 14: 6, 1975.

One patient with an aneurysm due to a lung arteriovenous fistula is presented. According to reports obtained from world medical literature this is an unfrequent nosological entity. As earliest clinical form, hemoptoic sputa which in a young patient can be interpreted as pulmonary tuberculosis, mitral cardiopathy and other diseases with a similar presentation were found. Radiological images could also lead to a suspicion of a lung neoplastic process. Diagnosis established through a good physical examination, phonocardiogram and angiocardio-gram Hemodynamic changes appeared in the patient are stressed. The following physical signs also contribute to presumptive diagnosis: systemic cyanosis, finger hippocratism and an extracardiac murmur. As recommended, the patient underwent surgery and favourable results were obtained.

RESUME

de Armas Pérez, L. et al. *Anévrisme par fistule artérioveineuse pulmonaire. Rapport d'un cas.* Rev Cub Med 14 : 6, 1975.

A propos d'un patient avec le diagnostic d'anévrisme par fistule artérioveineuse du poumon, entité nosologique peu commune, selon les renseignements enregistrés dans la littérature médicale mondiale. Au début la forme clinique fut avec des crachats hémoptysiques, ce que chez un jeune homme pouvait se confondre avec la tuberculose pulmonaire, cardiopathie mitrale et d'autres maladies ayant une présentation similaire. L'image radiologique peut faire soupçonner qu'il s'agit d'un processus néoformateur pulmonaire. On a pu établir le diagnostic au moyen d'un bon examen physique, le phonocardiogramme et angiocardiogramme. On souligne les changements hémodynamiques apparus chez le patient. Enfin, on souligne les signes physiques importants, tels que: le cyanose généralisée, hypocratisme des doigts et le souffle thoracique extra-cardiaque qui ont fort contribué à suspecter du diagnostic. Ce patient a subi traitement chirurgical, et on a obtenu de bons résultats.

PB3KMB

ApMac p.e. uepe3 JL, n jip. zjieBpz3M nocJie apTepH0B6H03H0r0 CBisma.Cooóme- HHe OfiHoro Cjy'iafl. Rev Cub Med. 14:6,1975.

IpefiCTaBjiHeTCH o^Hoñ cJijrqt c BHarHosoM aneBpn3MH H3 3a apTepHoBeH03Ho ro cBfflUH JierKKX, pe juco sexpe pasman 3aóojieBaeMocTt no jxaHHHM mhpoBoE Me .Híiuhhcko8 jniTepaTypH. Bo BpeMH KjmHiraecKO0 noHBJietiHñ diura upóseho3H3H M0Kp0Ta .íto y MOJiOfiHx moxho c'iHTaTB b ica^ecTBe jierow>ro TyóepKyjié3a, MHTpajmafl KapfluonaTHH hjih jcpyrax 3atiojieBaHra. PajtHOJiorEReckBfi Z30dpa- xeHHe Tarase mohbt BecTH k nOfi03peMB Jiero'moro HOB00(5pa303aTejiBH0r0 npo necea . lio cpe^cTBOM xopomero \$H32rgecKoro 3K3aMeHa,\$0H0KapflH0rpaMMu o aHrHOKapjmorpaMMH ycTaHoatum flnarH03 . flai0TCfl reMójumaMinecKHe H3MeHe- hz0 BTpe'iaeMux y nañHeHTa. Tarase yKa3UBaioTCH BaxHetoiae <\$H3íraecKne npn3- HaKH :reHepaJiH303aHHH0 nnaH03 , rrenoKpaTH3M najrmeB o **R&nwme** rpynHoro BHecepfleHHoro myMa.HTO BejiéT k noao3peHmo saarH03a.KaK Ehjio peK0MeHfl0- BaHO uauHeHTy nouBepajra k xupyprmo h pe3yjiTaTH *6ujm* y^objietbopatejiñhíe- MO.

BIBLIOGRAFIA

1. *Bakulev, A., E. Meshalkin.* Cardiopatías congénitas. Ediciones en lenguas extranjeras, Moscú, 1961.
2. *Manseur, K. A. et al.* Pulmonary arteriovenous fistula. *Am Surg* 37: 203-8, Apr. 1971.
3. *Moore, B. P.* Pulmonary arterio-venous fistula. *Thorax* 24: 381, May 1969.
4. *Sahn, H. et al.* Pulmonary arteriovenous fistula. *Dis Chest* 44: 542-546, 1963.
5. *Sluiter-Eringar, J. et al.* Pulmonary arteriovenous fistula. Diagnosis and prognosis in noncomplaint patients. *Am Rev Resp Dis* 100: 177-88, Aug. 1969.
6. *Sisel, R. J. et al.* Cerelud symptoms in pulmonary arteriovenous fistula. A result of paradoxical emboli. *Circulation* 41: 123-8, Jan. 1970.
7. *Díaz, G. et al.* Fístula arteriovenosa pulmonar. Estudio de un caso clínico. *Neumol Cir Tórax.* 26: 133-142, 2, 1965.
8. *Chávez, C. M. et al.* Arteriovenous fistula of the lung. *J Cardiovasc Surg (Torino)* 10: 410-5, Sept.-Oct. 1969.
9. *El Gamal, M. et al.* Cyanosis complicating hepatic cirrhosis. Report of a case due to múltiple pulmonary arteriovenous fistulas. *Am J Cardio* 25: 490-4, Apr. 1970.
10. *Saprin, R. P. et al.* Pulmonary hypertension in patients with pulmonary arteriovenous fistulae. *Br Heart J* 31: 559-69, Sept. 1969.
11. *Scott, C. P. et al.* Systemic artery-pulmonary vein fistulas congenital.
12. *Biancalama, L. et al.* Arteriovenous fistula of the lung: long term results in eighth operative cases. *Surgery* 65: 567-75, Apr. 1969.