



REPORTE DE CASO

Rotura de seudoaneurisma de la arteria pulmonar, una complicación poco común de hipertensión pulmonar



Rafael Conde Camacho^a, Hernán Darío Aguirre^{b,*}, Lorena Jiménez Castro^c, Andrés Felipe Posada^d y Jaime Cabrales^e

^a Fundación Neumológica Colombiana, Bogotá, Colombia

^b Clínica Universitaria Bolivariana-Hospital General de Medellín, Medellín, Colombia

^c Clínica de la Mujer-Clinica Country, Bogotá, Colombia

^d Centros especializados Hospital San Vicente Fundación, Medellín, Colombia

^e Fundación Cardioinfantil, Bogotá, Colombia

Recibido el 8 de enero de 2016; aceptado el 2 de marzo de 2016

Disponible en Internet el 22 de abril de 2016

PALABRAS CLAVE

Aneurisma;
Seudoaneurismas;
Arteria pulmonar;
Hipertensión
pulmonar

Resumen Se presenta el caso de una mujer de 72 años de edad que ingresa a la sala de emergencias por 6 h de dolor torácico pleurítico izquierdo irradiado a la espalda, asociado a disnea progresiva y hemoptisis masiva con posterior shock hipovolémico e insuficiencia respiratoria aguda. Se documentó un seudoaneurisma de rama subsegmentaria posterior izquierda de la arteria pulmonar, con rotura secundaria a hipertensión pulmonar. El tratamiento se inició con soporte hemodinámico y soporte ventilatorio. Se manejó la lesión vía endovascular con embolización transcatéter con coils, obteniendo una resolución de la hemorragia y la corrección del defecto anatómico. Con este tratamiento, la paciente logra estabilidad hemodinámica y una evolución clínica adecuada, sin requerir lobectomía y siendo dada de alta a la segunda semana de tratamiento. Se describe una enfermedad rara, difícil de diagnosticar y con altas tasas de morbilidad.

© 2016 Asociación Colombiana de Medicina Crítica y Cuidado Intensivo. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

KEYWORDS

Aneurysm;
Pseudoaneurysm;
Pulmonary artery;
Pulmonary
hypertension

Pulmonary artery pseudoaneurysm rupture: Rare complication of pulmonary hypertension

Abstract The case is presented of a 72 year old woman admitted to the emergency room due to a 6 hour history of left-sided pleuritic chest pain radiating to the back. She also presented with progressive dyspnoea and massive haemoptysis leading to hypovolemic shock and acute

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: hernan-aguirre@hotmail.com (H.D. Aguirre).

respiratory failure. A pseudoaneurysm of the posterior subsegmental branch of the upper lobe of the pulmonary artery was documented. Treatment was started with haemodynamic and ventilatory support. Endovascular treatment of the lesion was performed using coil embolisation, with the bleeding being resolved and the anatomical defect corrected. With this treatment, the patient regained clinical stability and satisfactory progress. The patient did not require a lobectomy, and was discharged two weeks later. A description is provided of a rare and difficult to diagnose pathology that has high mortality rates.

© 2016 Asociación Colombiana de Medicina Crítica y Cuidado Intensivo. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

Los aneurismas y seudoaneurismas de la vasculatura pulmonar son raros. Fueron descritos por primera vez en el siglo XIX y por lo general implican las arterias pulmonares principales¹⁻⁴. Su patogénesis y la historia natural no se entienden completamente, por lo general se encuentran en el tronco pulmonar, constituyendo menos del 1% de los aneurismas de la cavidad torácica; con menor frecuencia se ven en las arterias segmentarias⁵⁻⁷. Los aneurismas pueden ser congénitos o adquiridos, siendo estos últimos más frecuentes⁸. Se presenta una paciente ingresada en la sala de emergencias con dolor torácico, disnea y hemoptisis asociada a hemotórax, en quien fue posteriormente documentado un seudoaneurisma segmentario de la arteria pulmonar con rotura secundaria a hipertensión pulmonar.

Caso clínico

Paciente con 72 años de edad con antecedente de hipertensión pulmonar secundaria a síndrome de apnea hipopnea obstructiva del sueño en tratamiento con sistema de presión positiva. Fue admitida en la sala de emergencia debido a 6 h de dolor torácico que al inicio fue de características pleuríticas, irradiado a espalda, asociado a disnea progresiva y hemoptisis masiva.

Al ingreso tenía una presión arterial de 80/40 mmHg, frecuencia respiratoria de 28 rpm, saturación de oxígeno del 84% con una FIO2 del 50%. Los gases arteriales iniciales mostraron acidosis respiratoria con alteración grave de la oxigenación y por lo tanto se inició ventilación mecánica y vasopresores.

Una radiografía de tórax al ingreso evidenció derrame pleural izquierdo (fig. 1), y en el contexto de la paciente se consideró la posibilidad de hemotórax; se realizó una toracostomía cerrada, obteniendo 950 cc de sangre.

Se realizó una angiotomografía torácica en busca del sitio de la hemorragia, documentándose hemotórax izquierdo residual, signos de hipertensión pulmonar precapilar y una lesión en el lóbulo superior izquierdo compatible con un seudoaneurisma de la arteria pulmonar con hematoma pulmonar asociado (fig. 2). Dadas las comorbilidades de la paciente se consideró no candidata para lobectomía y se sometió a una arteriografía pulmonar en la que se evidenció la hipertensión pulmonar, con una presión arterial pulmonar sistólica de 90 mmHg, diastólica en 10 mmHg y una media de 47 mmHg. Durante el procedimiento se

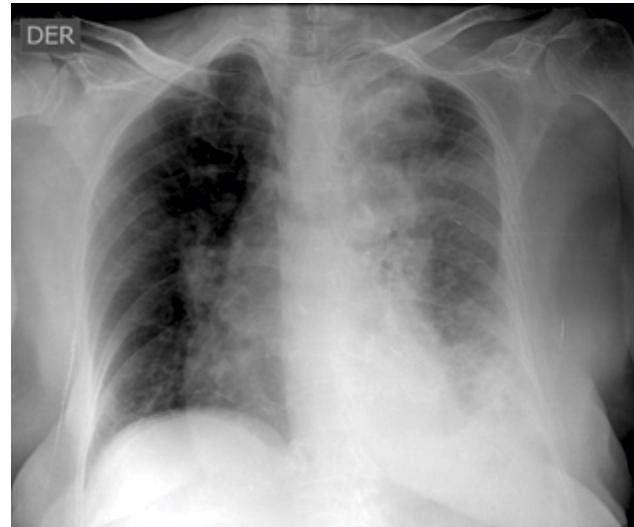


Figura 1 Radiografía de tórax, proyección anteroposterior. Disminución de la radiotransparencia del hemitórax izquierdo, con borramiento del ángulo costofrénico y mala definición del diafragma homolateral por derrame pleural. Prominencia de los hilios pulmonares por aumento del tamaño de las arterias pulmonares centrales secundario a cambios por hipertensión pulmonar.

documentó el seudoaneurisma en rama subsegmentaria posterior izquierda de la arteria pulmonar (fig. 3A), que fue exitosamente embolizada a través de catéter con coils (fig. 3B), sin complicaciones (fig. 3C).

La paciente presentó evolución clínica satisfactoria durante su estancia en la unidad de cuidados intensivos y fue trasladada al servicio de hospitalización. Una tomografía de tórax realizada 2 semanas después del ingreso mostró oclusión completa del seudoaneurisma, con resolución del hematoma pulmonar y disminución del tamaño del hemotórax (fig. 4).

Debido a su estabilidad clínica y buen progreso durante la hospitalización no requirió tratamiento quirúrgico y fue dada de alta después del retiro de la sonda de toracostomía.

Discusión

Un aneurisma se define como un aumento del 50% en el diámetro del vaso en comparación con el segmento vascular adyacente¹. Los verdaderos aneurismas implican

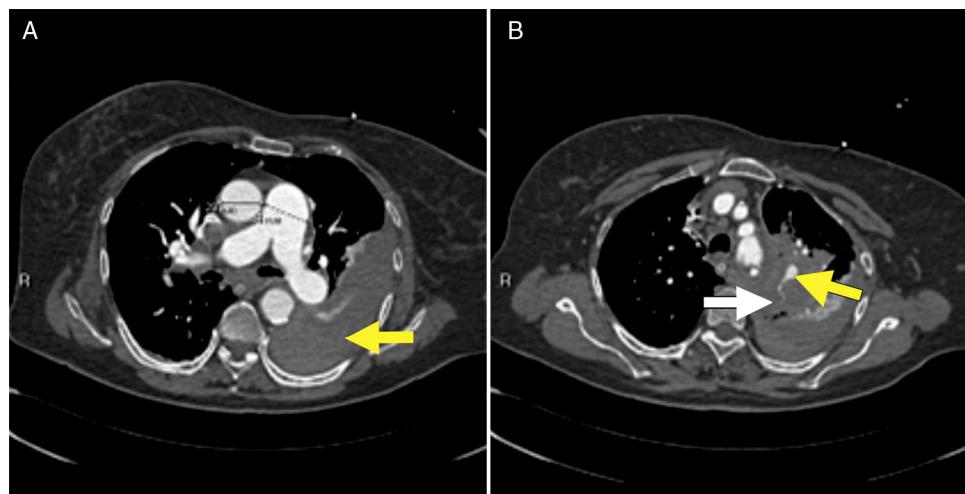


Figura 2 Angiotomografía de tórax, cortes axiales.

A. Cambios por hipertensión pulmonar precapilar consistentes en aumento del diámetro del tronco de la arteria pulmonar (mayor de 29 mm) y radio con la aorta ascendente de 1,17 (medidas obtenidas de acuerdo con los criterios descritos en el texto). Derrame pleural izquierdo con densidad de 50-70 UH por hemotórax (flecha amarilla) y atelectasia pasiva del parénquima pulmonar adyacente. B. Imagen sacular hiperdensa en el lóbulo superior izquierdo, inferior a rama posterior de la arteria pulmonar lobar superior (flecha amarilla), con diámetro de 8 mm, con línea hiperdensa que se extiende en sentido posterior (flecha blanca) por extravasación del medio de contraste; hallazgos compatibles con seudoaneurisma roto. Se observa consolidación hiperdensa sin broncograma por hematoma parenquimatoso.

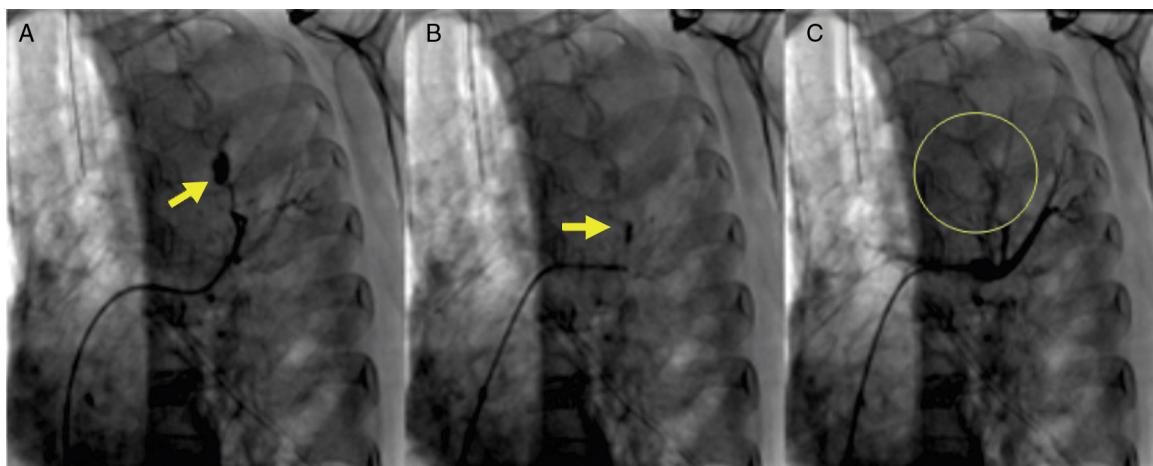


Figura 3 Arteriografía pulmonar supraselectiva, vistas oblicuas.

A. Opacificación con medio de contraste de ramas segmentarias de la arteria pulmonar lobar superior con una imagen redondeada conectada al árbol arterial (flecha amarilla), compatible con seudoaneurisma.
 B. Imagen obtenida posterior a la embolización supraselectiva donde se evidencia el coil en el interior del saco seudoaneurismático (flecha amarilla).
 C. Inyección de contaste posterior a la embolización donde se observa ausencia de llenado del seudoaneurisma, sin complicaciones postratamiento.

compromiso de las 3 capas arteriales, mientras que un seudoaneurisma es una lesión en la que no todas las capas están involucradas, y además, tiene un alto riesgo de sangrado^{1,9}.

La prevalencia de aneurismas de la arteria pulmonar (AAP) se estima que es de 1 en 14.000 aneurismas, con mayor incidencia en pacientes con hipertensión pulmonar severa de cualquier etiología (1-25%)¹. Sin embargo, se está viendo un incremento en el número de casos de aneurisma,

debido al aumento en la supervivencia de los pacientes con hipertensión pulmonar¹⁰.

Los aneurismas se dividen en 2 categorías: central (tronco pulmonar, arterias pulmonares derecha e izquierda) y periféricos (que se originan en las arterias segmentarias o ramas arteriales intrapulmonares); representan el 70 y 30%, respectivamente². Ellos han sido clasificados como AAP, si no hay comunicación con las venas y como aneurismas

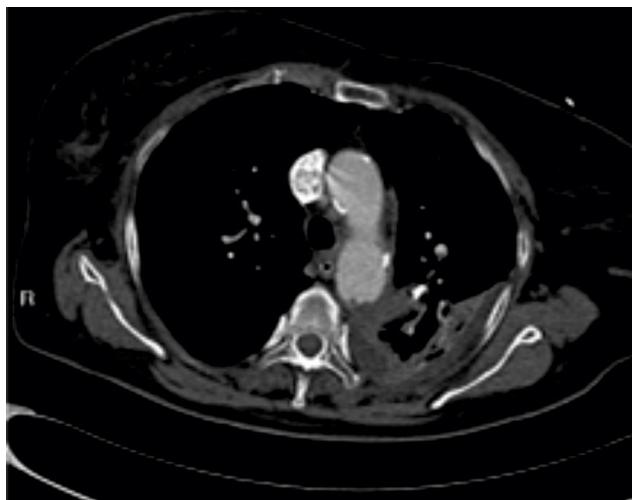


Figura 4 Angiotomografía pulmonar, corte axial. Estudio obtenido una semana después de la embolización, donde se identifica el coil en el segmento posterior del lóbulo superior izquierdo, sin opacificación, con el contraste, del saco seudoaneurismático. Hay resolución parcial del hematoma parenquimatoso y el volumen del hemotórax ha disminuido.

arteriovenosos en el caso de que exista una comunicación arteriovenosa; también pueden ser clasificados como proximal y distal¹.

Existen múltiples etiologías congénitas y adquiridas (**tabla 1**)^{1,3,7}. La tuberculosis y la sífilis son las principales causas de los AAP en la era preantibiótica; la sífilis afecta a las arterias pulmonares principales y la tuberculosis a las pequeñas ramas intraparenquimatosas formando lo que se conoce como aneurismas de Rasmussen^{1,7,9}. La infección por gérmenes muy virulentos produce necrosis de la pared con formación de seudoaneurismas, mientras que los menos agresivos originan aneurismas verdaderos¹ que se forman por invasión directa o embolismos sépticos¹¹.

Tabla 1 Causas de aneurisma y seudoaneurisma de la arteria pulmonar

Congénitas

- Estenosis valvular/posvalvular
- Incremento del flujo pulmonar (shunt izquierda derecha), síndrome de Eisenmenger
- Enfermedades del tejido conectivo (de Marfan, Ehlers-Danlos, Williams-síndrome de Beuren, esclerosis tuberosa)

Adquiridas

- Hipertensión de la arteria pulmonar
- Necrosis quística de la media
- Vasculitis: Behcet, Hughes-Stovin, Takayasu
- Infección: tuberculosis (aneurismas de Rasmussen), infecciones bacterianas, micóticas
- Neoplasias
- Trauma
- Iatrogénicas
- Idiopáticas

Fuente: Castañer et al.³.

En la era postantibiótica, las principales causas de seudoaneurismas son la infección, el trauma y la iatrogenia debida a catéteres dirigidos (Swan-Ganz), toracoscopia, biopsias, radioablação y cirugía pulmonar^{1,9,12}. Los AAP posttraumáticos son una entidad descrita pero con pocos casos reportados en la literatura¹³. Los provocados por los catéteres se han estado presentando con mayor frecuencia, especialmente cuando se asocian con factores de riesgo: edad mayor de 60 años, rigidez del catéter, inflación prolongada del balón, múltiples manipulaciones del catéter, hipertensión pulmonar y anticoagulación¹⁴.

A pesar de los múltiples factores asociados con aneurismas y seudoaneurismas ya descritos, el factor predisponente más común es la hipertensión arterial pulmonar (HAP)¹ tal como se presenta en la paciente de este caso. La HAP se define como una presión arterial pulmonar media mayor de 25 mmHg en reposo (normales 10 y 15 mmHg). La HAP tiene una presentación clínica inespecífica y es por eso que no se reconoce hasta que está en etapas avanzadas, cuando el aumento de la presión arterial pulmonar ha remodelado las arterias pulmonares³. En los pacientes de edad avanzada la hipertensión pulmonar se describe con frecuencia, se asocia con múltiples comorbilidades y diagnóstico tardío; también se presenta con bajas tasas de supervivencia, lo cual puede estar relacionado con la progresión de la HAP, con mala adaptación ventricular a la sobrecarga del ventrículo derecho¹⁶. En estadios avanzados de la enfermedad puede presentarse arteritis necrosante lo que provoca la destrucción de la pared arterial pulmonar con formación de aneurismas¹² y el riesgo de rotura debido a la mayor tensión de la pared por aumento progresivo de la presión¹.

En la tomografía computarizada (TC) se observa que el aumento de la resistencia vascular que se produce en la HAP provoca dilatación arterial. El tronco pulmonar debe ser medido en su plano de bifurcación en ángulo recto desde su eje longitudinal y justo lateral a la aorta ascendente¹⁰ (**fig. 2A**). El diámetro normal de la arteria pulmonar es 25 ± 3 , con un máximo de 29 mm y el de las principales arterias pulmonares de hasta 20 mm. Diámetros mayores a estos se consideran anormales y se asocian con hipertensión pulmonar¹. Este hallazgo tiene una sensibilidad del 87% y una especificidad del 89% para el diagnóstico de HAP, pero si se combina con una relación de arteria-bronquio por encima de 1, la especificidad llega al 100%. La relación del diámetro del tronco pulmonar y la aorta mayor de 1 también se ha correlacionado con HAP, especialmente en los menores de 50 años^{3,7}.

En la radiografía de tórax pueden evidenciarse secundaria a aneurisma de la arteria pulmonar ampliación hilar en casos de aneurismas centrales¹⁴ o como nódulos pulmonares en los de ubicación periférica^{3,9,13}. La TC se considera la modalidad de imagen no invasiva de elección en pacientes con sospecha de AAP; antes de las intervenciones terapéuticas (embolización o cirugía) y la angiografía se considera el estándar de oro para el diagnóstico de AAP^{5,11}, métodos empleados secuencialmente para el diagnóstico y tratamiento en el caso presentado. La TC con contraste permite una aproximación de la presencia, tamaño y localización de los aneurismas⁹, siendo identificados como áreas de dilatación sacular o fusiforme que se llenan de medios de contraste simultáneamente con el llenado de la arteria pulmonar.

La presentación clínica varía en función de la causa, la ubicación y el tamaño⁸, pero el dolor torácico, disnea y tos son manifestaciones frecuentes y todos estuvieron presentes en la paciente de nuestro caso^{11,15,16}. Las complicaciones de los seudoaneurismas incluyen la rotura espontánea con hemorragia pulmonar y hemotórax^{1,13}, erosión intrapulmonar, disección, compresión de estructuras adyacentes, infección y trombosis, que puede originar una embolización distal⁷. Cuando se presentan con hemoptisis masiva, la mortalidad es mayor del 50%, siendo esta la complicación más grave¹, y por lo tanto su diagnóstico precoz es crucial y cambia la morbimortalidad de estos pacientes^{3,4,14}.

Con los hallazgos de HAP y sospecha de AAP el tratamiento conservador ha demostrado ser insuficiente para prevenir la rotura del aneurisma; Por lo tanto, se prefiere el tratamiento quirúrgico y/o percutáneo, dependiendo del caso^{11,14}. En las lesiones centrales, (tronco pulmonar o derecha principal o arterias izquierda), cuando hay una indicación quirúrgica, puede manejarse con prótesis de dacrón, homoinjertos vasculares, también con aneurismorrafia, arteroplastia o plicatura o reconstrucciones con parche de pericardio¹⁵. En los aneurismas periféricos el tratamiento endovascular y embolización transcatéter es una de las posibilidades terapéuticas, con la ventaja de ser un procedimiento poco invasivo. Finalmente la otra posibilidad es la lobectomía, especialmente si el sangrado no se controla^{2,11,13}.

La embolización es ampliamente aceptada para aneurismas y seudoaneurismas, usando reconstrucciones multiplanares de TC que sirven para la planificación del procedimiento, la identificación de la arteria nutricia y la medición del tamaño del cuello del aneurisma y el saco⁸, y se realiza tan selectivamente como sea posible a fin de minimizar los infartos pulmonares¹².

Conclusión

Los aneurismas de la arteria pulmonar y seudoaneurismas son procesos patológicos poco frecuentes, especialmente los periféricos o distales, y se han asociado con múltiples factores de riesgo entre los que se destaca la hipertensión pulmonar. La angiotomografía multiplanar es un estudio seguro y ampliamente disponible para el diagnóstico y la planificación del tratamiento, tanto quirúrgico como mínimamente invasivo mediante embolización transcatéter, demostrando este último ser una herramienta importante para los pacientes cuyas comorbilidades o cuyo estado clínico crítico no permiten intervenciones de cirugía mayor.

Conflictos de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Restrepo C, Carswell A. Aneurysms and pseudoaneurysms of the pulmonary vasculature. *Semin Ultrasound CT MRI*. 2012;33:552–66.
- Murphy J, Adyanthaya A, Adams P, McArthur J, Walker W. Peripheral pulmonary artery aneurysm in a patient with limited respiratory reserve: Controlled resection using cardiopulmonary bypass. *Ann Thorac Surg*. 1987;43:323–5.
- Castañer E, Gallardo X, Rimola J, Pallardo Y, Mata J, Perendreu J, et al. Congenital and acquired pulmonary artery anomalies in the adult: Radiologic overview. *Radiographics*. 2006;26: 349–71.
- Bowler RP, Durham J, Schwarz MI. Massive hemoptysis from a pulmonary artery aneurysm associated with an emphysematous bulla. *Chest*. 1998;113:1130–1.
- Kotwica T, Szumarska J, Staniszewska-Marszalek E, Mazurek W, Kosmala W. Idiopathic pulmonary artery aneurysm. *Echocardiography*. 2009;26, 593-395.
- Pande S, Tewari P, Agarwal S, Jain M, Phadke R. Idiopathic bilateral segmental. *Pulmonary Artery Aneurysm Ann Thorac Surg*. 2014;97:e33–5.
- Kodikara S, Sivasubramanian M. Bilateral pulmonary artery aneurysms. *Legal Medicine*. 2009;11:496–7.
- Tsu EYK, Cheun YK, Chow L, Chau LF, Yu SK, Chan JHM. Idiopathic pulmonary artery aneurysm: Digital subtraction pulmonary angiography grossly underestimates the size of the aneurysm. *Clin Imaging*. 2001;25:178–80.
- Nguyen E, Silva C, Seely J, Chong S, Soo Lee K, Müller N. Pulmonary artery aneurysms and pseudoaneurysms in adults: Findings at CT and radiography. *AJR Am J Roentgenol*. 2007;188: W126–34.
- Sánchez MA. Pulmonary hypertension: The contribution of MDCT to the diagnosis of its different types. *Radiología*. 2010;52:500–12.
- Sever M, Verstovsek S, Erasmus J Jr, Mattiuzzi G. Mycotic pulmonary artery aneurysm due to Aspergillus infection in a patient with leukemia: Case report and review of the literature. *Leuk Res*. 2010;34:e133–6.
- Hiraki T, Kanazawa S, Yasui M, Dendo O, Yosimura K, Hiraki T. Transcatheter embolization of pulmonary artery false aneurysm associated with primary pulmonary hypertension. *Cardiovasc Intervent Radiol*. 2014;27:186–9.
- Dimarakis I, Thorpe J, Papagiannopoulos K. Successful treatment of a posttraumatic pulmonary artery pseudoaneurysm with coil embolization. *Ann Thorac Surg*. 2005;79: 2134–6.
- Choong C, Meyers B. Lung mass after pulmonary artery catheterization: Beware of the pulmonary artery false aneurysm. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 2005;130:899–900.
- Tuncer A, Tuncer E, Tas S, Erdem H, Polat A. Repair of pulmonary artery aneurysms. *J Card Surg*. 2011;26:501–5.
- Shimony A, Benjamin F, Jonathan A. Pulmonary arterial hypertension in the elderly-clinical characteristics and lung-term survival. *Lung*. 2012;190:645–9.