

Implantación de *stent* en la fístula central aortopulmonar paliativa de las cardiopatías congénitas con hipoperfusión pulmonar. Experiencia de dos casos

Juan Alcívar, Natividad Peña, Alberto Cabrera*, Aitor Jiménez, Susana Gómez, Julián de la Torre** y Agustín Oñate

Sección de Hemodinámica. Servicio de Cardiología. *Sección de Cardiología Pediátrica.

**Sección de Cuidados Intensivos Pediátricos. Hospital de Cruces. Vizcaya.

angioplastia coronaria transluminal percutánea / aorta / arteria pulmonar / cardiopatías congénitas / cateterismo cardíaco / cianosis / fístula arterioarterial / hipoxia / implante de Stent / lactante / prótesis de politetrafluoroetileno

Describimos la experiencia pionera de implantación de *stent* en la fístula aortopulmonar central de politetrafluoroetileno microporoso expandido. Dos lactantes de 1 y 13 meses con cardiopatía cianógena y disfunción de la prótesis con hipoxia crítica a las horas y a los 13 meses de su creación. El cateterismo urgente demostró estenosis de la fístula en un caso y obstrucción completa en el otro. La angioplastia e implantación de *stent* se realizó por vía arterial retrógrada y de forma libre en el primer caso (sin catéter guía) y con catéter guía coronario derecho de Judkins en el segundo con acceso venoso y paso desde el ventrículo derecho a la aorta. Se obtuvo mejoría de saturaciones mantenida. El primer caso falleció por insuficiencia renal y se exponen los datos de la autopsia.

Palabras clave: *Cardiopatía congénita. Fístula. Stent.*

STENT IMPLANTATION IN PALIATIVE CENTRAL AORTO-PULMONARY SHUNT OF CONGENITAL CARDIOPATHIES WITH PULMONARY HIPOPERFUSION. TWO CASES EXPERIENCE

We describe the pioneer experience of ballon angioplasty and stent implantation in the central politetrafluoroethylene aorto-pulmonary shunt. Two infants 1 and 13 month-old, with cyanotic complex congenital cardiopathy and pulmonary hipoperfusion, presented signs of prosthesis dysfunction with severe and critic hypoxemia. The angioplasty and stent implantation were performed through retrograde femoral arterial approach and «freely» (without a guide catheter) in the first case and venous via by using Judkins right coronary guiding catheter in the second one. Both cases experienced sustained O₂ saturation improvement, although the neonate died on the fifth postprocedure day clue to acute renal failure. The postmortem anatomical findings are shown.

Key words: *Congenital heart disease. Shunt. Stent.*

(*Rev Esp Cardiol* 1999; 52: 863-868)

INTRODUCCIÓN

La utilización del *stent* en las cardiopatías congénitas ha supuesto un gran avance en el intervencionismo pediátrico. Se han obtenido excelentes resultados en numerosas situaciones donde la angioplastia convencional no ofrecía resultados del todo satisfactorios, evitando en muchos casos operaciones y reoperaciones complejas y de riesgo. Se conocen los resultados de

su aplicación en la estenosis de rama pulmonar, en la coartación de aorta, en la obstrucción de conductos quirúrgicos, en las estenosis de venas pulmonares y sistémicas, en el mantenimiento de la permeabilidad del ductus en aquellas cardiopatías que lo precisan y recientemente Zahn et al¹ describieron la implantación en una fístula de Blalock-Taussig con éxito.

La fístula central aortopulmonar descrita en 1975 constituye una variante paliativa en las cardiopatías cianóticas con hipoperfusión pulmonar con sus indicaciones, ventajas e inconvenientes con respecto a otros tipos de derivaciones²⁻⁷. Describimos los dos primeros casos de angioplastia e implantación de *stent* en este tipo de fístula en 2 niños con cardiopatía compleja, el primero de ellos comunicado por nuestro grupo recientemente⁸.

Correspondencia: Dr. J. Alcívar Villa.
Avda. de Algorta, 60, 2.º D. 48990 Algorta. Vizcaya.

Recibido el 11 de noviembre de 1998.
Aceptado para su publicación el 26 de febrero de 1999.

CASOS CLÍNICOS

Caso 1

Varón de un mes y diez días de vida, de 3,8 kg de peso, diagnosticado de atresia tricuspídea con relación normal de grandes vasos. A los 8 días de vida se realizó atrioseptostomía de Rashkind y fue dado de alta. En los sucesivos controles la cianosis fue en aumento, por lo que se decidió realizar una fístula sistémico-pulmonar. El día de ingreso y en relación con la canulación de una vía venosa periférica, presentó una crisis hipóxica severa que no cedió a pesar de tratamiento intensivo. Se procedió a realizar cirugía inmediata y fístula central de politetrafluoroetileno microporoso expandido (PTFE) de 20 mm de longitud por 4 mm de diámetro. En el postoperatorio inmediato el niño presentó inestabilidad hemodinámica, con una saturación inferior al 75% a pesar de ventilación mecánica con FIO₂ al 100%, óxido nítrico e inotrópicos. La situación clínica se hizo crítica a las 45 h del acto quirúrgico, con necesidad de inotropos, incluida la adrenalina a muy altas dosis.

Se decidió realizar cateterismo cardíaco. La saturación del niño al ser monitorizado en la sala de hemodinámica era del 55%. Se canalizó la arteria femoral izquierda según la técnica de Seldinger modificada. Se utilizó un introductor de 5 French (F) y seguidamente un catéter Gensini 5 F (USCI Bard Billerica MA, EE.UU.) con el que se realizó aortografía en la que se observó una tenue opacificación de la arteria pulmonar y de las cavidades izquierdas (fig. 1A). Se intercambió este catéter por un Picard de polietileno 4 F Balt Montmorency (France) de 108 cm de longitud que nos permitió sondear selectivamente la fístula central y verificar una estenosis severa de la anastomosis pulmonar (fig. 1B). Por el catéter se introdujo una guía Hannibal JEX (Schneider, Suiza) de 0,014 pulgadas por 315 cm de alto soporte que pasó a través de la fístula y se alojó distalmente en la rama pulmonar izquierda. Se anticoaguló con heparina sódica a dosis de 100 U/kg. Se intercambió el catéter Picard por un catéter de angioplastia coronaria Goldie (Schneider, Suiza) de 4 × 20 mm realizándose dos predilataciones a 6 atmósferas de presión. Tras cada hinchado observamos cómo la cintura estenosante desaparecía para volver a aparecer en el siguiente inflado y cómo la saturación mejoraba transitoriamente. Con referencia externa de la cintura estenosante sobre la guía, se expandió de forma libre sin catéter guía, un *stent* AVE GFX (Santa Rosa CA, EE.UU.) de 4 × 8 mm que se dilató hasta 8 atmósferas cubriendo el segmento distal de la prótesis (figs. 1C y D). Tras el deshinchado se produjo una mejora de la saturación hasta cifras del 85% de forma mantenida. A pesar de sondear de nuevo la fístula con el catéter Picard no fue posible contrastarla debido al aumento de flujo, por lo que recurrimos a la aortogra-

fía que fue muy demostrativa con una mayor densidad de contraste en la arteria pulmonar y en la levofase (figs. 1E y F). Tras el procedimiento se mantuvo la anticoagulación y se antiagregó con ácido acetilsalicílico.

La situación clínica mejoró pudiéndose retirar los inotrópicos a las 3 h del procedimiento, con saturaciones mantenidas entre el 80 y el 85% y la evolución fue favorable con buena oxigenación y estabilidad hemodinámica. Al cuarto día el paciente comenzó a presentar oliguria y al quinto día insuficiencia renal establecida. Se inició hemofiltración venovenosa que se complicó con hipotensión brusca y parada cardíaca que no revirtió a pesar de aplicar las medidas habituales de reanimación, y el paciente falleció.

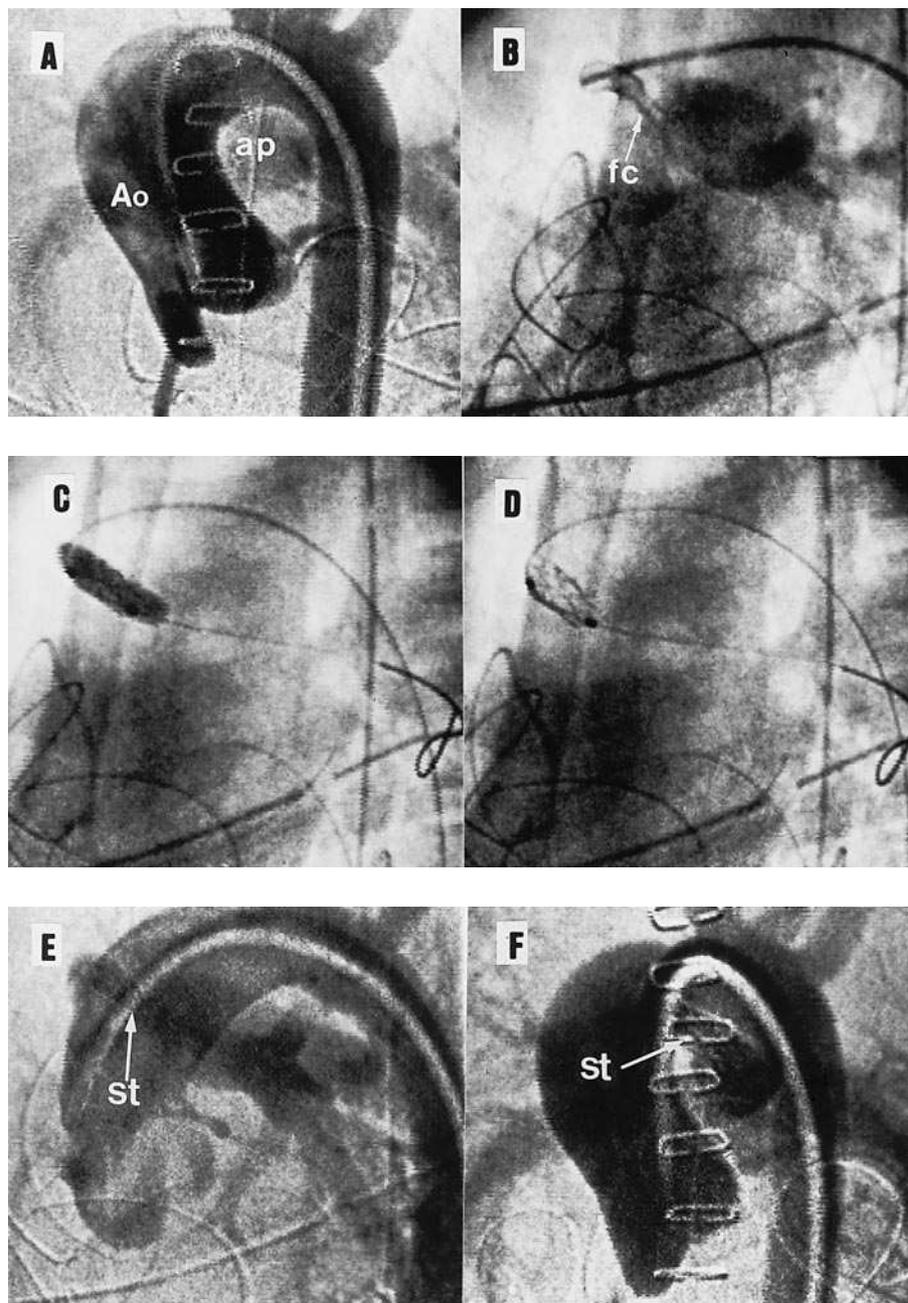
La autopsia confirmó el diagnóstico de la cardiopatía. La fístula central presentaba un orificio aórtico con buena luz y el *stent* AVE sin endotelizar, en el segmento distal del conducto, protruyendo ligeramente en la arteria pulmonar (figs. 1G y H). En el estudio histopatológico renal se objetivó la existencia de una necrosis tubular distal aguda, en relación con una insuficiencia renal de causa prerrenal.

Caso 2

Lactante de 13 meses y 6 kg de peso diagnosticado de cardiopatía cianógena compleja: *situs solitus*, discordancia auriculoventricular y doble salida de ventrículo derecho situado a la izquierda, con estenosis/atresia pulmonar y gran aorta en posición izquierda con ductus. La válvula mitral situada a la derecha acabalgaba sobre el septo y el ventrículo anatómicamente izquierdo, situado a la derecha, era de pequeño tamaño con comunicación interventricular (fig. 2A).

Al segundo día de vida se realizó una fístula central entre la aorta ascendente y la arteria pulmonar izquierda de PTFE de 3,5 mm de diámetro por 12 mm de longitud, mejorando las saturaciones, por lo que fue dado de alta. En los sucesivos controles el paciente se encontraba estable. A los 13 meses presentó un descenso de la saturación que se situó entre el 65 y el 70%, sospechándose por la clínica y por estudio eco-Doppler la disfunción de la fístula.

Se realizó cateterismo por punción de vena femoral derecha y se pasó el catéter desde la aurícula derecha al ventrículo anatómicamente derecho a través de la válvula mitral acabalgante y de éste a la aorta. La aortografía demostró el cierre completo de la fístula. Mediante una guía de intercambio larga de 0,035 pulgadas por 260 cm se cambió el catéter angiográfico por un catéter guía Judkins derecho de 6 F (Meditech, Watertown MA, EE.UU.), que se posicionó en el origen de la fístula obstruida (fig. 2B). Se anticoaguló al paciente con heparina sódica y se pasó una guía coronaria Traverse de 0,014 pulgadas



*Fig. 1. A: aortografía en proyección anteroposterior. Tenue opacificación de la arteria pulmonar; B: inyección selectiva en la fístula en proyección OAI; C y D: expansión del stent AVE; E y F: aortografía en posición AP y OAI. Mayor flujo en arteria pulmonar; G y H: autopsia; G: apertura longitudinal de la fístula con exposición del stent (*orificio aórtico); H: apertura del tronco pulmonar y protrusión del stent por el orificio pulmonar; Ao: aorta; AP: arteria pulmonar; FC: fístula central; ST: stent; OAI: proyección oblicua anterior izquierda; AP: proyección anteroposterior.*

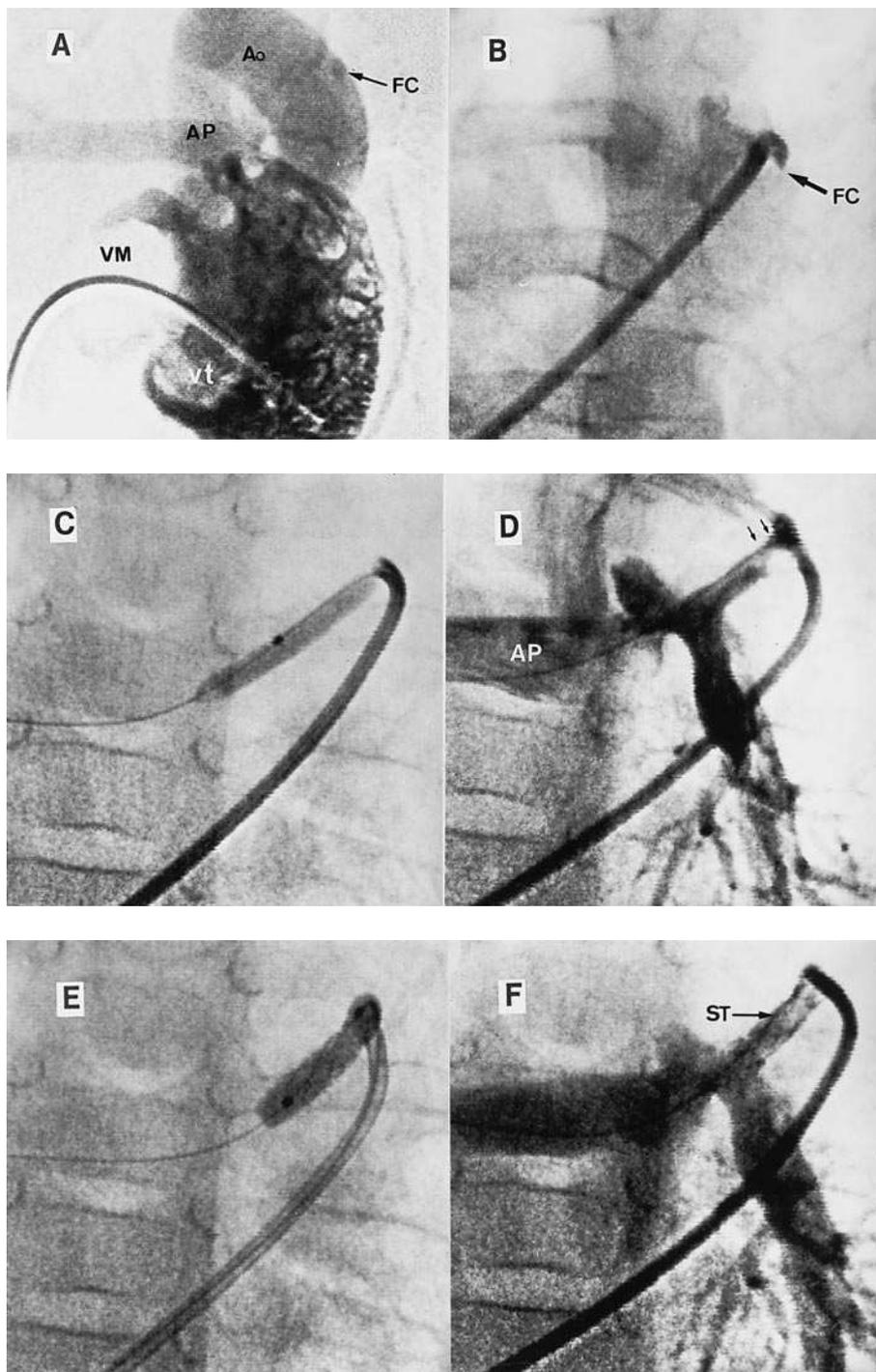


Fig. 2. Discordancia auriculoventricular, doble salida de ventrículo derecho y estenosis/atresia pulmonar, válvula mitral acabalgante sobre el septo. A: paso del catéter a través de la válvula mitral al ventrículo derecho. En la ventriculografía derecha se observa la aorta situada a la izquierda con la fístula ocluida; B: sondaje selectivo de la fístula obstruida con el catéter guía de Judkins en proyección OAI; C: dilatación con catéter balón Goldie 3,5 × 20 mm; D: apertura de la fístula con retroceso elástico proximal (flechas); E y F: implantación del stent AVE. VM: válvula mitral; el resto de abreviaturas como en la figura 1; OAI: oblicua anterior izquierda.

(ACS, Temecula CA, EE.UU.) al árbol pulmonar derecho distal. Se introdujo un balón Goldie de 3,5 por 20 mm con el que se consiguió abrir completamente la fístula, visualizándose el árbol pulmonar, aunque persistiendo una imagen estenosante proximal por recoil que no cedió a pesar de realizar varios hinchados llegando hasta una presión de 10 atmósferas (figs. 2C y D). Ante esta situación se decidió implantar un *stent* AVE de 3,5 × 11 mm a 11 at-

mósferas de presión, con resultado excelente mejorando las saturaciones hasta un 85% de forma estable (figs. 2E y F).

DISCUSIÓN

En el año 1975, Cazzaniga et al² introdujeron una nueva fístula paliativa que consistía en la interposición de un pequeño tubo de PTFE entre la aorta y el tronco

de la arteria pulmonar o sus ramas principales en recién nacidos con cianosis severa y flujo pulmonar reducido, que fue denominada «fístula aorto-pulmonar central». Esta técnica presenta una serie de ventajas como su sencillez de construcción, y para algunos autores es el procedimiento de elección en casos de emergencia en las primeras semanas de vida, en niños en estado crítico y de bajo peso^{3,4}. Destaca también su versatilidad, ausencia de congestión pulmonar o insuficiencia cardíaca y la facilidad para desmontarla quirúrgicamente durante el procedimiento definitivo⁴. En la forma tronco-tronco el flujo pulmonar tiene una distribución derecha-izquierda similar, lo que supone un desarrollo uniforme del árbol pulmonar con ausencia de distorsión, estenosis u obstrucción de alguna de sus ramas⁴.

Aunque los informes iniciales en relación con este tipo de fístulas fueron muy alentadores, comunicaciones posteriores indicaron una incidencia significativa de cierre temprano o tardío, así como la necesidad de la creación de una segunda fístula³⁻⁶. Las causas de disfunción de la fístula han sido la angulación o «kinking» de la prótesis y la estenosis de la anastomosis con trombosis secundaria⁵⁻⁷. Con el fin de reducir la incidencia de estas complicaciones Amato et al⁴ aconsejan seguir meticulosamente los siguientes detalles quirúrgicos: realizar unos orificios adecuados en la aorta y en la arteria pulmonar, utilizar una prótesis lo más corta posible ligeramente curvada y biselada en sus extremos y evitar las angulaciones de la misma y el pinzado durante su manejo.

En nuestro conocimiento estos son los dos primeros casos de angioplastia e implantación de *stent* en la fístula central. Así como en el Blalock Taussig es bien conocido el sondaje selectivo mediante catéteres preformados, la localización de un pequeño orificio en una gran aorta nos parece de mayor dificultad, tanto para su contrastación como para mantener un apoyo adecuado para la angioplastia e implantación del *stent*. En el primer caso la imposibilidad de acceder a la aorta por vía venosa nos obligó a puncionar la arteria femoral y realizar la implantación de forma «libre» (sin catéter guía), ya que por el momento no tenemos a nuestra disposición catéteres guía de 5 F. El catéter Picard de polietileno, de textura muy blanda, nos permitió explorar la aorta ascendente sin riesgo de lesionar la pared, sondando selectivamente la fístula. Debido a la longitud de este catéter utilizamos una guía de 0,014 pulgadas de 315 cm Hannibal JEX que, además del intercambio por el catéter balón, permitió un buen apoyo. En el caso 2 llegamos a acceder a la aorta por vía venosa y pudimos realizar el procedimiento con catéter guía. En este caso, la dificultad añadida era la oclusión completa de la fístula, con muy poco espacio para posicionar el catéter. La reciente oclusión de la fístula con trombosis todavía no organizada permitió progresar la guía y aplicar la técnica de

monorraíl. En este caso el catéter balón consiguió la apertura de la fístula ocluida. La persistencia de una estenosis significativa proximal, al igual que la reaparición de la indentación en el primer caso, nos hizo sospechar la existencia de retroceso elástico, que se pudo solventar con el *stent*. Por otro lado, se sabe que la dilatación simple en el postoperatorio inmediato presenta un riesgo de disrupción de la sutura que puede llegar a ser una complicación fatal. De esta forma, el *stent* protege la línea de sutura además de resolver el retroceso elástico⁹.

Tras los estudios en el animal de experimentación y en la clínica humana¹⁰, el *microstent* AVE es uno de los *stents* que habitualmente utilizamos en nuestro medio y su elección fue sobre todo por la buena visibilidad de la versión GFX.

Finalmente, consideramos que en estos niños en tan grave estado es decisiva una actuación rápida y certera y que cualquier error puede ser catastrófico. La colaboración entre el cardiólogo de adultos con experiencia en angioplastia coronaria y el pediátrico, o la experiencia de uno de ellos en estas dos áreas de la hemodinámica, puede ser definitiva para obtener buenos resultados.

En resumen y tras la experiencia pionera de estos dos casos de niños con cardiopatía cianógena compleja y en grave estado, podemos afirmar que la angioplastia e implantación de *stent* en la fístula central aortopulmonar es posible, aunque todavía se precisa de una mayor casuística y seguimiento para poder llegar a conclusiones definitivas. La técnica puede realizarse por vía arterial o por vía venosa y de forma «libre» o con catéter guía coronario y técnica monorraíl de angioplastia coronaria. Así se resuelven situaciones clínicas graves, que pueden ser definitivas en la evolución de estos pacientes, evitándose intervenciones quirúrgicas de alto riesgo.

BIBLIOGRAFÍA

1. Zahn EM, Chang AC, Aldousany A, Burke RP. Emergent stent placement for acute Blalock-Taussig shunt obstruction after stage 1 Norwood surgery. *Cathet Cardiovasc Diagn* 1997; 42: 191-194.
2. Cazzaniga AB, Lamberti JJ, Siewers RD, Sperling DR, Dietrich WR, Arcilla RA et al. Arterial prosthesis of microporous expanded polytetrafluoro-ethylene for construction of aorta-pulmonary shunts. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1976; 72: 357-363.
3. Lamberti JJ, Carlisle J, Waldman JD, Lodge FA, Kirkpatrick SE, George L et al. Systemic-pulmonary shunts in infants and children. Early and late results. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1984; 88: 76-81.
4. Amato JJ, Cotroneo JV, Galdieri RJ. The central shunt: aorto pulmonary Gore-tex shunt. *Semin Thorac Cardiovasc Surg* 1990; 1: 34-35.
5. Lamberti JJ, Campell C, Replogle RL, Anagnostopoulos C, Lin CY, Chiemmonghoktip P et al. The prosthetic (teflon) central aorto pulmonary shunt for cyanotic infants less than three weeks old. Results and long-term follow up. *Ann Thorac Surg* 1979; 28: 568-577.

6. Donahoo JS, Gardner TJ, Zahka K, Kidd BSL. Systemic-pulmonary artery shunt in neonates and infants using microporous expanded polytetrafluoroethylene. Immediate and late results. *Ann Thorac Surg* 1980; 30: 146-150.
7. Jennings RB, Innes BJ, Brickman RD. Use of microporous expanded polytetrafluoroethylene graft for aorta-pulmonary shunts in infants with complex cyanotic heart disease. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1978; 76: 489-494.
8. Alcibar J, Cabrera A, Martínez, P, Peña N, Oñate A. Stent implantation in a Central Aorto pulmonary shunt. *J Invas Cardiol* 1999; 11: 506-509.
9. Hijazi ZM. Stenting for postoperative congenital heart disease in infants [comentario editorial]. *Cathet Cardiovas Diagn* 1997; 42: 195.
10. Ozaki Y, Keane D, Ruygrok P, De Feyter P, Stertzer S, Serrius PW. Acute clinical and angiographic results with the new AVE micro coronary stent in bail-out management. *Am J Cardiol* 1995; 76: 112-116.