

Hemorragia Maciça na Via Aérea Superior: Um Caso Raro de Fístula Aorto-Brônquica



Massive Upper Airway Bleeding: A Rare Case of Aortobronchial Fistula

Paola Gudiel ARRIAZA¹, Amparo Sánchez SERRANO², Jorge Marques do VALE³, Isabel Gil PEREIRA³, António Simões TORRES³, Maria José Martín SÁNCHEZ⁴
Acta Med Port 2016 Jun;29(6):409-412 • <http://dx.doi.org/10.20344/amp.6842>

RESUMO

A apresentação clínica de hemoptise e hematemese gera muitas vezes confusão. Nessas situações, a determinação da proveniência do sangue presente na via aérea superior pode tornar-se uma tarefa difícil. A fístula aorto-brônquica é uma entidade rara, mas tem sido descrita em doentes submetidos a cirurgia vascular da aorta torácica. A suspeita clínica é fundamental. Os autores apresentam o caso de um doente de 69 anos, sexo masculino, com o diagnóstico prévio de gastrite crónica que foi admitido por vômitos hemáticos. Após 24 horas na enfermaria, o doente apresentou um novo episódio de hemorragia maciça complicado com insuficiência respiratória. A tomografia computadorizada do tórax mostrou um aneurisma da aorta torácica descendente e sinais de fístula aorto-brônquica que motivaram a realização de cirurgia endovascular urgente. Os sintomas iniciais da fístula aorto-brônquica são inespecíficos dificultando o diagnóstico, o que pode conduzir a um atraso na instituição do tratamento adequado. A realização de broncoscopia nestes casos é controversa.

Palavras-chave: Doenças da Aorta; Fístula Brônquica; Hemoptise; Procedimentos Endovasculares.

ABSTRACT

Clinical presentation of haemoptysis and haematemesis often generates confusion, becoming a difficult task to determine the source of upper airway bleeding. Aortobronchial fistula is a rare entity, but has been a reported complication in patients that have undergone aortic vascular surgery. A high clinical suspicion is fundamental to making this diagnosis. A 69 year old male, with a previous diagnosis of chronic gastritis, is admitted to the emergency room for vomiting blood. In the first 24 hours after admission, the patient develops respiratory insufficiency after an episode of massive bleeding from his mouth. A computed tomography is performed, which shows a descending thoracic aortic aneurism and signs of aortobronchial fistulae. Urgent thoracic endovascular repair was performed. Early symptoms of aortobronchial fistula are nonspecific which complicates the diagnosis and can lead to treatment delay. The use of bronchoscopy in these cases is controversial.

Keywords: Aortic Diseases; Bronchial Fistula; Endovascular Procedures; Hemoptysis.

INTRODUÇÃO

Hemoptise consiste na emissão de sangue pela boca proveniente do aparelho respiratório inferior. Alguns sinais auxiliam na identificação das hemoptises: se a hemoptise é pequena o sangue virá misturado com a expectoração; a hemoptise é precedida ou acompanha-se de tosse; o sangue deverá ser vermelho vivo e espumoso por apresentar bolhas de ar. No caso de hematemese, o sangue proveniente do aparelho digestivo apresenta uma cor escura, pH ácido e a sua emissão é geralmente precedida de vômitos e/ou náuseas. Contudo a apresentação clínica de hemoptise e hematemese gera muitas vezes confusão. Nessas situações, a determinação da origem do sangue pode tornar-se uma tarefa difícil. O conteúdo gástrico pode ser aspirado e posteriormente eliminado pela tosse. Por outro lado, o sangue proveniente das vias aéreas inferiores pode ser deglutido e de seguida expelido pelo vômito.

Os casos de fístula aorto-brônquica (FAB) são raros e a suspeita clínica é fundamental. A maioria dos casos ocorre em doentes com história prévia de cirurgia vascular da

aorta. Noutros casos existe a associação com traumatismo e processos infecciosos da aorta torácica. Contudo têm sido descritos alguns casos de fístula aorto-brônquica mesmo na ausência de antecedentes de cirurgia vascular aórtica, trauma ou processo infeccioso da aorta.¹ O caso clínico aqui relatado ilustra estes desafios diagnósticos e terapêuticos.

Caso Clínico

Doente do sexo masculino, 69 anos de idade, foi hospitalizado por vômitos hemáticos sugestivos de hematemese. Tratava-se de um ex-fumador com uma carga tabágica de 50 UMA (unidades maço ano), com história de tuberculose pulmonar há 40 anos e sem hábitos etílicos. O doente teve um episódio prévio semelhante, três meses antes da admissão atual, diagnosticado como gastrite crónica após a realização de endoscopia digestiva alta. Foi iniciado tratamento com inibidor da bomba de prótons.

Logo após a admissão, foi realizada endoscopia digestiva alta que excluiu hemorragia gastrointestinal. As análises

1. Departamento de Ciências Biomédicas. Universidad de León. León. Espanha.

2. Servicio de Neumología. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca. Salamanca. Espanha.

3. Serviço de Pneumologia. Centro Hospitalar Tondela-Viseu. Viseu. Portugal

4. Servicio de Radiodiagnóstico. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca. Salamanca. Espanha.

✉ Autor correspondente: Amparo Sánchez Serrano. arsanchez@nuevoirris.com

Recebido: 26 de julho de 2015 - Aceite: 13 de abril de 2016 | Copyright © Ordem dos Médicos 2016



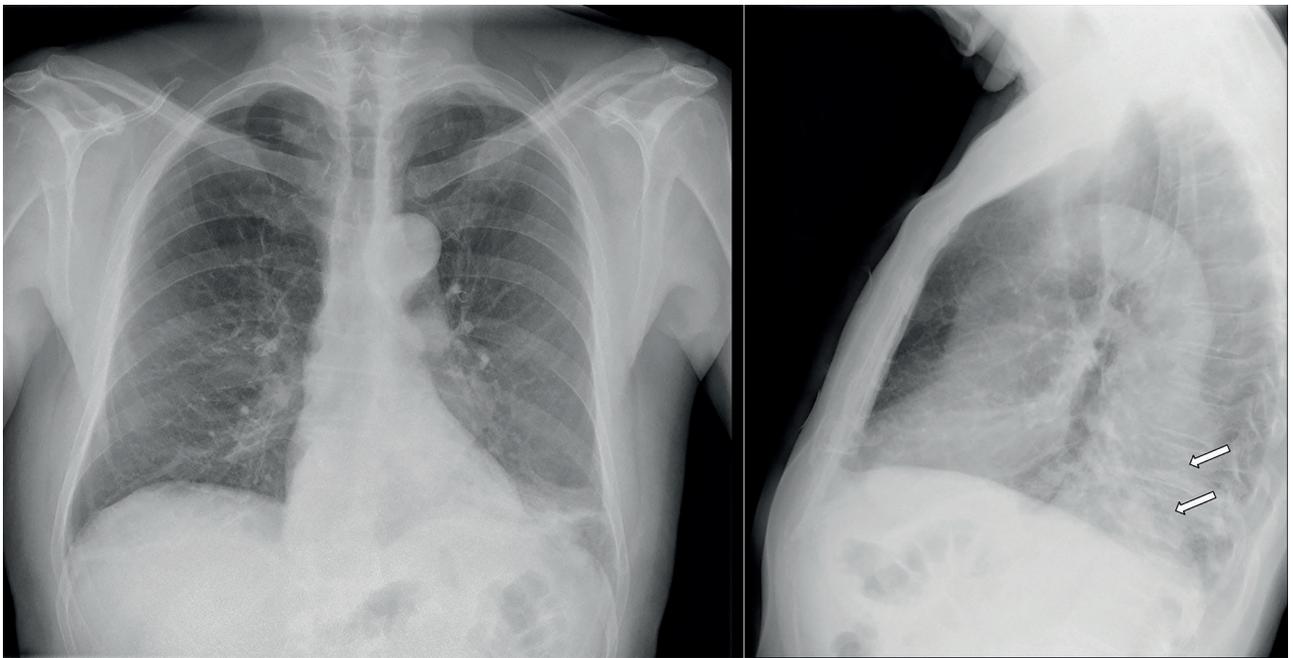


Figura 1 – Radiografia do tórax (incidência PA e perfil esquerdo), à admissão, mostrando aneurisma da aorta torácica e infiltrado alveolar a nível do lobo inferior esquerdo

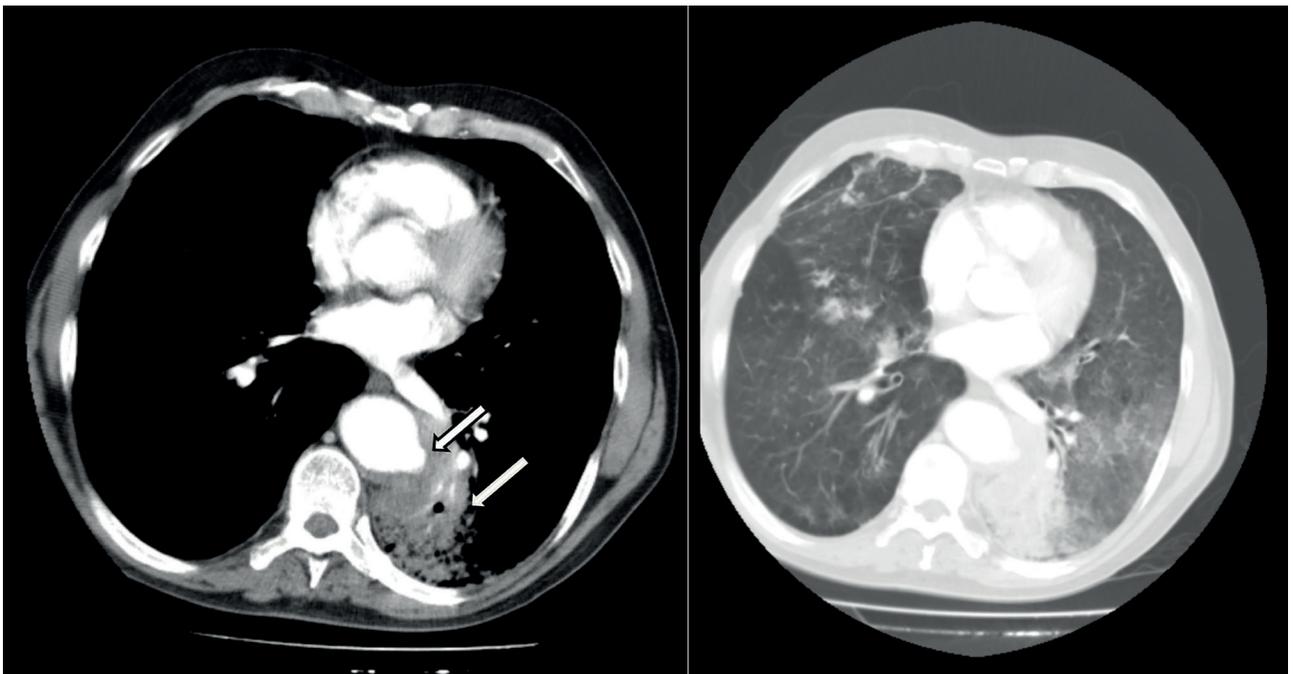


Figura 2 – Angio-TC pré-cirúrgica, as setas indicam a deformidade do lúmen da aorta torácica descendente na sua parede pósterolateral esquerda associada a consolidação basal do parênquima pulmonar sugestiva de hemorragia alveolar

sanguíneas mostraram hemoglobina de 12,5 g/dL e coagulação sem alterações. A gasometria arterial demonstrou insuficiência respiratória parcial. A radiografia do tórax mostrou uma área de hipotransparência com bordos irregulares localizada no lobo inferior esquerdo. (Fig. 1).

Após 24 horas de estabilidade clínica na enfermaria, o doente apresentou um novo episódio de hemorragia maciça, aparentemente precedido por vômito. Devido às alterações na radiografia do tórax, foi realizada TC do tórax (Fig. 2) que evidenciou: aneurisma da aorta torácica descendente com uma deformidade na sua parede pósterolateral

onde se observava uma evaginação associada a coleção heterogênea de 2 cm, sugerindo fístula aorto-brônquica devido a úlcera penetrante da aorta com hematoma parietal. No parênquima pulmonar observaram-se opacidades em vidro despolido e consolidações em ambas as bases sugestivas de hemorragia alveolar.

Dada a gravidade da insuficiência respiratória e a possibilidade de recorrência de novo episódio, o doente foi transferido para a unidade de cuidados intensivos (UCI) até à realização de cirurgia vascular. Foi realizada a colocação de endoprótese aórtica (*stent* endovascular) através da

artéria femoral direita. O doente permaneceu sob entubação orotraqueal e ventilação mecânica durante quatro dias devido à insuficiência respiratória grave. No terceiro dia após a colocação do *stent* endovascular verificou-se agravamento dos infiltrados pulmonares associados a febre e leucocitose. Foi iniciada antibioterapia com meropenem com melhoria clínica e radiológica. O doente teve alta da enfermaria de Pneumologia após ter completado 14 dias de antibioterapia, com resolução da insuficiência respiratória e da infeção pulmonar associada.

DISCUSSÃO

O volume de sangue eliminado pode ser útil no diagnóstico diferencial de hemoptise. Os processos patológicos relativamente benignos, como bronquite e pneumonia são responsáveis pela maioria dos casos de hemoptise, mas estas patologias tornam-se menos comuns com o aumento da gravidade da hemoptise. As doenças inflamatórias crónicas (tuberculose, bronquiectasias e abscesso pulmonar) e as neoplasias pulmonares malignas consistem nas causas mais frequentes de hemoptise maciça.^{2,3}

A fistula aorto-brônquica (FAB) é uma entidade rara, o primeiro caso foi publicado por Girardet em 1914.⁴ A FAB consiste num quadro clínico grave com elevadas taxas de mortalidade devido à existência de uma comunicação direta entre a aorta torácica e a via aérea traqueobrônquica.

Nos doentes com FAB o sintoma mais frequente é a hemoptise. Alguns doentes apresentam hemoptises ligeiras intermitentes (95%)⁵ que progridem para um episódio maciço (50%).⁶ Outros sintomas incluem toracalgia (45%), tosse (44%) e dispneia (38%).⁷

O diagnóstico atempado bem como a intervenção cirúrgica urgente podem evitar um desfecho fatal. Contudo o diagnóstico pré-morte é obtido apenas em 44-56% dos casos, com a presença subjacente de aneurismas crónicos pós-traumáticos.⁸

A FAB surge como uma complicação de um aneurisma ou pseudoaneurisma de etiologia diversa. Antes de 1960, as causas mais frequentes de FAB eram doenças infecciosas (tuberculose, sífilis e infeções fúngicas).⁸ Desde essa altura, a maioria dos casos são descritos em contexto de doença aterosclerótica. Um pseudoaneurisma pode-se desenvolver após uma anastomose ineficaz, infeção do material protésico ou erosão parenquimatosa provocada pelo *stent*,⁹ a última consiste na causa mais frequente (75%).¹⁰

O período de tempo até à manifestação inicial varia entre três semanas a 23 anos após a realização de cirurgia aórtica.¹¹ Mais frequentemente, a FAB compreende uma comunicação entre a aorta torácica descendente e a árvore brônquica esquerda; sendo raro o atingimento da árvore brônquica direita e o envolvimento traqueal.^{4,6,11} Portanto, neste caso houve uma maior dificuldade para estabelecer um diagnóstico devido à ausência das causas frequentes de FAB.

A broncoscopia pode localizar a fonte da hemorragia, mas pode não conseguir determinar o trajeto da fistula. Este procedimento acarreta o risco de perfuração ou de

remoção do coágulo e por isso é necessário a presença das infraestruturas adequadas no caso de necessidade de intervenção cirúrgica urgente.⁸ Contudo, apesar dos riscos envolvidos alguns autores defendem a broncoscopia como o procedimento de escolha.⁶ No nosso caso, optámos pela realização de um estudo de imagem, dado que a broncoscopia podia provocar um novo episódio de hemorragia maciça, que poderia não ser controlada, e por existir uma elevada suspeita de anomalia da vasculatura pulmonar.

A radiografia do tórax é anormal em metade dos casos, e as alterações são por vezes inespecíficas (infiltrados, massa pulmonar, consolidações, derrame pleural).⁴

A tomografia computadorizada (TC) helicoidal pode ser utilizada para a identificação da FAB e é recomendada por alguns autores como o procedimento diagnóstico de escolha.¹² Pode mostrar um aneurisma aórtico associado a um padrão em vidro despolido no parênquima pulmonar adjacente, sugerindo a presença de FAB, como ocorreu no presente caso. No entanto, a TC frequentemente não consegue identificar a fistula propriamente dita.¹³

A angioressonância magnética e a angiotomografia têm-se revelado como as técnicas de diagnóstico não invasivas mais precisas para o diagnóstico e seguimento de patologia aórtica.¹⁴ A angiografia por vezes demonstra o aneurisma (78%) mas, apenas ocasionalmente, é útil para localizar a fistula (17%).⁶

A cirurgia torácica aberta convencional está associada a elevadas taxas de morbilidade e mortalidade, as complicações estão relacionadas com a realização de procedimentos urgentes em doentes com comorbilidades significativas. A correção endovascular da aorta torácica (TEVAR) consegue o controlo precoce da hemorragia nos casos de FAB, evitando a morbilidade associada à cirurgia torácica aberta.¹⁵

Existe uma experiência limitada na reparação endovascular da FAB em consequência do número reduzido de casos e do uso relativamente recente desta técnica.

CONCLUSÃO

O caso descrito demonstra a importância da suspeita clínica, particularmente nos casos de hemoptises potencialmente fatais sem fatores de risco identificáveis para FAB. Por outro lado a colaboração multidisciplinar revelou-se crucial quer para o diagnóstico quer para o tratamento da FAB.

PROTEÇÃO DE PESSOAS E ANIMAIS

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estavam de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos responsáveis da Comissão de Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

CONFIDENCIALIDADE DOS DADOS

Os autores declaram ter seguido os protocolos do seu centro de trabalho acerca da publicação de dados.

CONFLITOS DE INTERESSE

Os autores declaram que não possuem conflitos de interesses.

FONTES DE FINANCIAMENTO

Os autores declaram não ter recebido subsídios ou bolsas para a elaboração do artigo.

REFERÊNCIAS

- Zaietta GA, Raval AA, Murillo L, Mehta J, Byrd RP Jr, Roy TM. Case report and review of the literature: spontaneous aortobronchial fistula. *Tenn Med.* 2013;106:39-42.
- Santiago S, Tobias J, Williams AJ. A reappraisal of the causes of hemoptysis. *Arch Intern Med.* 1991;151:2449-51.
- Hirshberg B, Biran I, Glazer M, Kramer MR. Hemoptysis: etiology, evaluation, and outcome in a tertiary referral hospital. *Chest.* 1997;112:440-4.
- Kazerooni EA, Williams DM, Abrams GD, Deeb GM, Weg JG. Aortobronchial fistula 13 years following repair of aortic transection. *Chest.* 1994;106:1590-4.
- Miyazaki M, Hiraga S, Kitamura M, Takamiya T, Iida T, Hida M, et al. Aortobronchial fistula complicated with an aortic aneurysm in hemodialysis patient. *Nephron.* 1990;56:101-2.
- Mac Intosh EL, Parrott JC, Unruh HW. Fistulas between the aorta and tracheobronchial tree. *Ann Thorac Surg.* 1991;51:515-9.
- Demeter SL, Cordasco EM. Aortobronchial fistula: Keys to successful management. *Angiology.* 1980;31:431-5.
- Szolar DH, Riepl T, Stiskal M, Preidler KW. Aortobronchial fistula as a late complication of posttraumatic chronic aortic aneurysm. *AJR Am J Roentgenol.* 1995; 164:1511-3.
- Milano A, De Carlo M, Mussi A, Falashi F, Bortolotti U. Aortobronchial fistula after coarctation repair and blunt chest trauma. *Ann Thorac Surg.* 1999;67:539-41.
- Coblentz CL, Sallee DS, Chiles C. Aortobronchopulmonary fistula complicating aortic aneurysm: diagnosis in four cases. *AJR.* 1988;150:535-8.
- Ono M, Takamoto S, Kawauchi M, Egami J, Kotsuka Y. Aortobronchial fistula late after transverse arch replacement. *Ann Thorac Surg.* 2000;70:964-6.
- Urschel JD. The diagnostic importance of computed tomography in aortobronchial fistula—A case report. *Angiology.* 1993;44:817-9.
- Agarwal P, Chughtai A, Matzinger F, Kazerooni EA. Multidetector CT of aortic thoracic aneurysms. *RadioGraphics.* 2009;29:537-52.
- Ferretti GR, Choplin RH, Haponik EF, Hudspeth AS. Case report. Aortic pseudoaneurysm with aortobronchial fistula: diagnosis with CT angiography. *J Comput Assist Tomogr.* 1996;20:975-8.
- Riesenman PJ, Brooks JD, Farber MA. Thoracic endovascular aortic repair of aortobronchial fistulas. *J Vasc Surg.* 2009;50:992-8.

Endometrial Tuberculosis Simulating an Ovarian Cancer**Tuberculose Endometrial Simulando um Carcinoma do Ovário**

Silvia Eleonora DI GIOVANNI¹, Teresa Margarida CUNHA², Ana Luisa DUARTE³, Inês ALVES⁴
 Acta Med Port 2016 Jun;29(6):412-415 • <http://dx.doi.org/10.20344/amp.7706>

ABSTRACT

Female genital tuberculosis remains a major health problem in developing countries and is an important cause of infertility. As symptoms, laboratory data and physical findings are non-specific, its diagnosis can be difficult. We describe a case of a 39-year-old woman suffering from peri-umbilical pain and increased abdominal size for one year, anorexia, asthenia, weight loss, occasionally dysuria and dyspareunia, and four months amenorrhea. Laboratory data revealed cancer antigen 125 (CA-125) level of 132.3 U/mL, erythrocyte sedimentation rate of 42 mm/h, and gamma-globulins of 2.66 g/dL. Computer Tomography scan showed loculated ascites. It was initially suspected a carcinomatous origin, but ascites evaluation was negative for malignant cells. Magnetic Resonance Imaging from another hospital showed endometrial heterogeneity. Therefore, an endometrial biopsy was performed demonstrating an inflammatory infiltrate with giant cells of type Langhans and bacteriological culture identified *Mycobacterium tuberculosis*.

Keywords: Tuberculosis, Female Genital; Endometritis; Peritonitis, Tuberculosis; Ovarian Neoplasms.

RESUMO

A tuberculose genital feminina continua a representar uma patologia importante nos países em desenvolvimento e constitui uma causa importante de infertilidade. Os seus sintomas, achados laboratoriais e exame físico não são específicos, tornando difícil o seu diagnóstico. Descrevemos o caso de uma doente do sexo feminino, de 39 anos, com dor peri-umbilical e aumento do volume abdominal desde há um ano, anorexia, astenia, perda ponderal, ocasionalmente disúria e dispareunia, assim como amenorreia desde há quatro meses. Os dados laboratoriais mostraram valores de 132,3 U/mL do marcador tumoral CA-125, 42 mm/h de velocidade de sedimentação e 2,66 g/dL de gama-globulinas. A tomografia computadorizada mostrou ascite loculada. Inicialmente suspeitou-se de etiologia maligna, mas o exame citológico do líquido ascítico foi negativo para células malignas. Foi efectuada ressonância magnética pélvica, noutra instituição, que revelou heterogeneidade do endométrio. Foi então realizada biópsia endometrial que revelou um infiltrado inflamatório com células gigantes de Langhans e o exame bacteriológico isolou *Mycobacterium tuberculosis*.

Palavras-chave: Tuberculose Genital Feminina; Endometrite; Peritonite Tuberculosa; Neoplasia do Ovário.

1. Department of Radiological Sciences. Institute of Radiology. Catholic University of Sacred Heart. A. Gemelli Hospital. Rome. Italy.

2. Department of Radiology. Instituto Português de Oncologia de Lisboa. Lisboa. Portugal.

3. Department of Radiology. Hospital do Espírito Santo. Évora. Portugal.

4. Radiology Department. Hospital Central do Funchal. Funchal. Portugal.

✉ Autor correspondente: Silvia Eleonora Di Giovanni. sedg15@yahoo.it

Recebido: 07 de abril de 2016 - Aceite: 25 de maio de 2016 | Copyright © Ordem dos Médicos 2016

