

CASO CLÍNICO

Fístula arterio-arterial entre a artéria pulmonar e artérias intercostais – a propósito de um caso clínico de «unilateral rib notching»



F. Morais*, T. Almeida e P. Campos

Serviço de Imagiologia, Hospital Santa Maria, Centro Hospitalar Lisboa Norte (CHLN), Lisboa, Portugal

Recebido a 6 de setembro de 2012; aceite a 22 de agosto de 2013
Disponível na Internet a 15 de janeiro de 2014

PALAVRAS-CHAVE

Artéria intercostal;
Artéria pulmonar;
Fístula
arterio-arterial

KEYWORDS

Intercostal artery;
Pulmonary artery;
Arterio-arterial
fistula

Resumo Os autores apresentam um caso clínico de um doente de 35 anos a quem foi efetuado o diagnóstico de fístula arterio-arterial sistémico-pulmonar e fazem uma revisão da literatura sobre fístulas arterio-arteriais sistémico-pulmonares baseado nos achados radiológicos de um caso excecional.

© 2012 Sociedade Portuguesa de Pneumologia. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos os direitos reservados.

Arterio-arterial fistula between pulmonary and intercostal arteries – Case report of “unilateral rib notching”

Abstract The authors present a clinical case of a 35-year-old patient who was diagnosed with intercostal artery-to-pulmonary artery fistula and review the literature of systemic-to-pulmonary fistulae based on radiological findings of an exceptional case report.

© 2012 Sociedade Portuguesa de Pneumologia. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introdução

As fístulas arteriais sistémico-pulmonares no adulto são comunicações anormais entre artérias sistémicas aberrantes ou hipertrofiadas e artéria pulmonar¹.

Este tipo de malformações arteriais ocorrem entre a artéria pulmonar e as artérias intercostais, mamárias internas, brônquicas, pericárdicas, esofágicas, entre outras^{2,3}.

As fístulas arterio-arteriais (FAA) sistémico-pulmonares podem ser de causa adquirida, secundárias a eventos inflamatórios/infeciosos (por exemplo actinomicose, tuberculose), cirúrgicos (pós-cirurgia cardiotorácica ou colocação de drenos torácicos) ou neoplásicos. Contudo, a idade jovem de alguns doentes em que foram detetadas estas fístulas sugere que algumas possam ser anomalias congénitas raras, com apenas cerca de 20 casos descritos de provável etiologia congénita^{2–6}.

Relativamente à sintomatologia deste tipo de fístulas, elas podem manifestar-se por quadro de dispneia, hemoptises e/ou sinais de insuficiência cardíaca congestiva

* Autor para correspondência.

Correio eletrónico: fatimasmorais@gmail.com (F. Morais).

ou ser assintomáticas e, no caso de ausência de sintomas, é habitualmente a presença de um sopro na auscultação cardiopulmonar ou frêmito que desencadeia a investigação por alterações na radiografia de tórax (tais como «rib notching» ou infiltrado do parênquima pulmonar) ou com base em outros exames complementares de diagnóstico^{3,5,7,8}.

As potenciais complicações das fistulas arteriais sistémico-pulmonares incluem sobrecarga de volume, hipertensão pulmonar, complicações infecciosas e/ou hemorragia grave por rotura³.

Os autores apresentam um caso clínico de um doente jovem do sexo masculino a quem foi efetuado o diagnóstico de fistula entre as artérias intercostais e a artéria pulmonar com base nos dados de exames imagiológicos.

Descrição do caso clínico

Doente do sexo masculino, 35 anos, caucasiano, construtor civil, recorreu ao Serviço de Urgência do Hospital de Santa Maria por dispneia súbita, negando outros sintomas do foro respiratório (como hemoptises) ou cardíaco (palpitações). Referia que estes episódios de dispneia súbita eram esporádicos, negando toma de medicação dirigida. Não apresentava outros antecedentes pessoais ou familiares relevantes. Negava hábitos tabágicos, alcoólicos ou medicamentosos, bem como internamentos prévios.

O exame objetivo demonstrou apenas discreto broncospasmato à auscultação pulmonar. Foi efetuada radiografia de tórax (figs. 1 e 2) que revelou «ratamento»/irregularidade do bordo inferior da 4^a à 7^a costelas esquerdas («unilateral rib notching»), assim como proeminência da vascularização pulmonar e hipotransparência do terço inferior do pulmão



Figura 1 Radiografia de tórax incidência pósterio-anterior (PA) demonstra irregularidade do bordo inferior da 4^a à 7^a costelas esquerdas («unilateral rib notching»), proeminência da vascularização pulmonar e hipotransparência do terço inferior do pulmão esquerdo.



Figura 2 Radiografia de tórax perfil revela hipotransparência do lobo inferior desse lado como confirmado pela radiografia de perfil.

esquerdo, envolvendo o lobo inferior desse lado como confirmado pela radiografia de perfil (fig. 2).

Face o achado radiográfico de «unilateral rib notching» foi realizada angio-TC torácica (tomografia computadorizada com protocolo dedicado para estudo vascular), que revelou

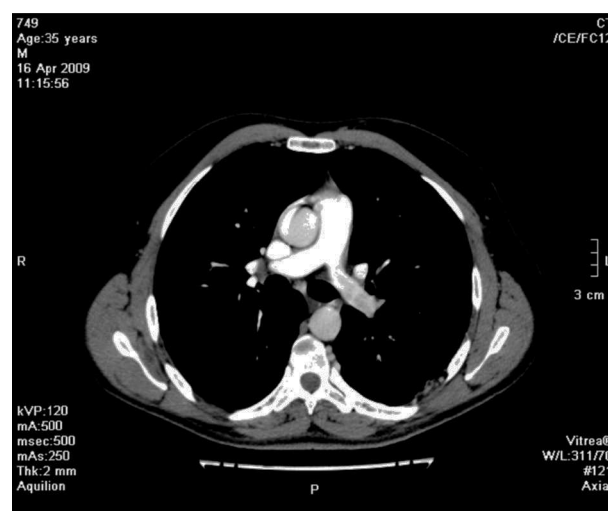


Figura 3 Angio-TC de tórax (pós-injeção endovenosa de contraste) no plano axial demonstra diminuição de realce do ramo esquerdo da artéria pulmonar em relação ao ramo direito da artéria homónima.

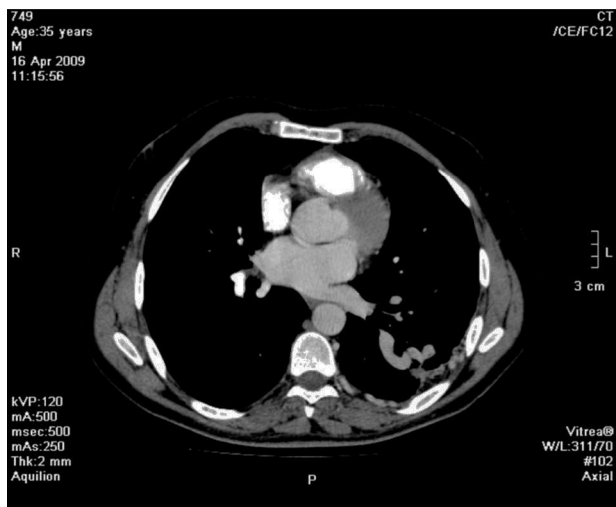


Figura 4 Angio-TC de tórax (pós-injeção endovenosa de contraste) no plano axial demonstra dilatação e tortuosidade das artérias intercostais associado a aumento de calibre do ramo segmentar esquerdo da artéria pulmonar.

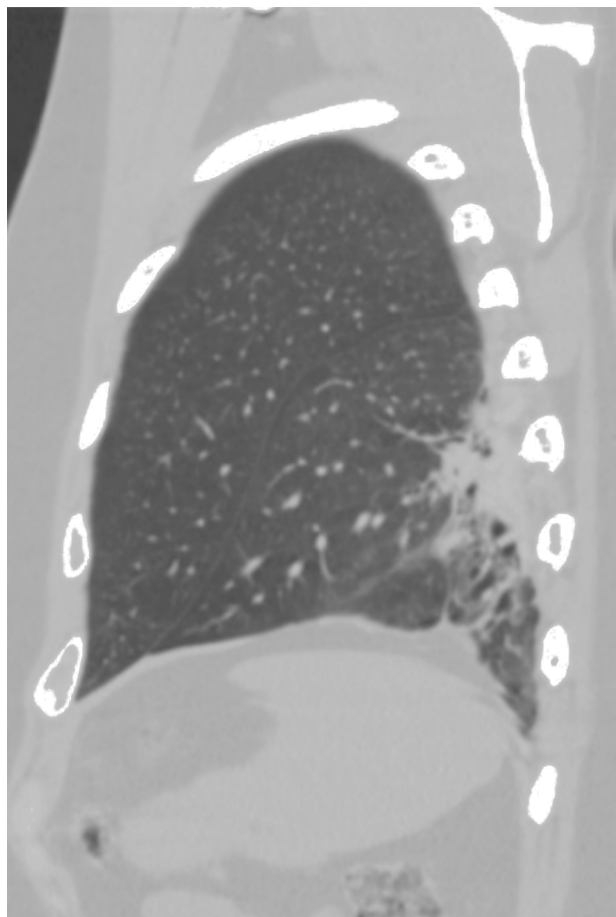


Figura 5 Reconstrução sagital em janela de parênquima pulmonar revela alteração do parênquima pulmonar subpleural do lobo inferior esquerdo traduzida por bronquiectasias e bronquiolectasias de tração.

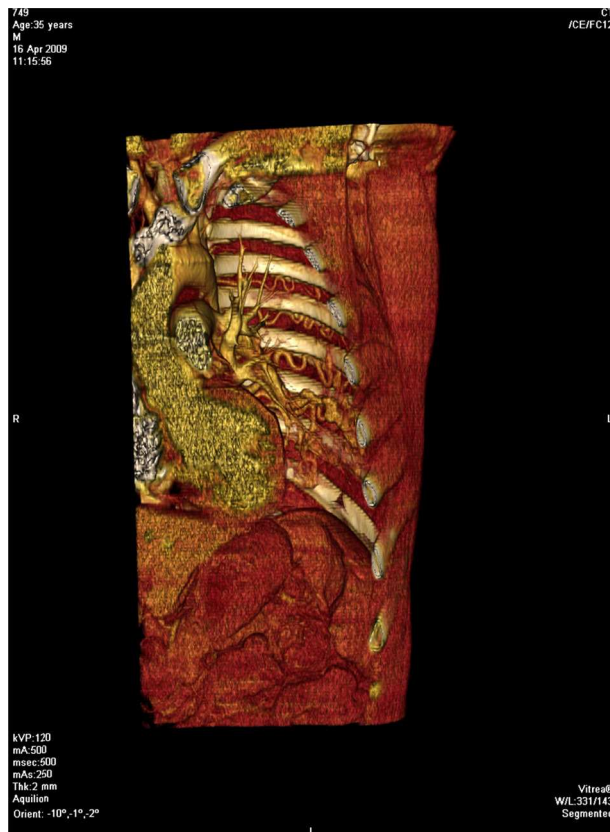


Figura 6 Reconstrução coronal 3 D demonstra dilatação e tortuosidade das artérias intercostais.

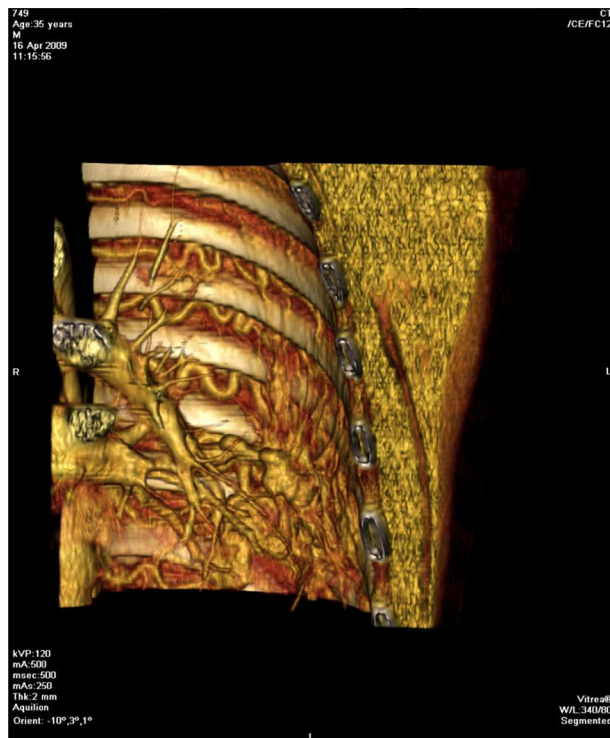


Figura 7 Reconstrução coronal 3 D demonstra dilatação e tortuosidade das artérias intercostais e ramo segmentar da artéria pulmonar associado a novo vascular periférico no lobo inferior esquerdo.

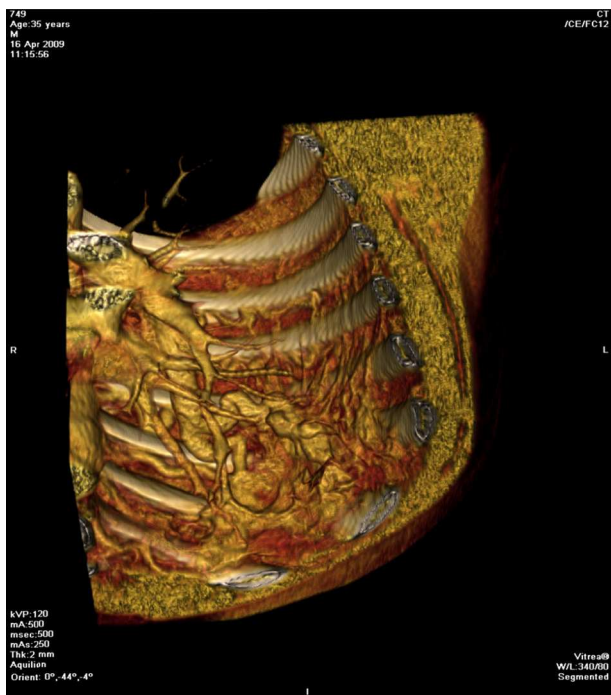


Figura 8 Reconstrução coronal oblíqua 3D demonstra «novelo» arterial (parcialmente extrapleural, transpleural e intraparenquimatoso) drenado via transparenquima para o ramo da artéria pulmonar homolateral.

diminuição relativa de densidade do ramo esquerdo da artéria pulmonar (pós-injeção endovenosa contraste iodado) (fig. 3), dilatação e tortuosidade das artérias intercostais homolaterais (figuras 4, 6 e 7), reconhecendo-se «novelo» arterial (fig. 8) (parcialmente extrapleural, transpleural e intraparenquimatoso) drenado via transparenquima para o ramo da artéria pulmonar homolateral, associado a alterações do parênquima pulmonar adjacente traduzidas por bronquiectasias e bronquiloectasias de tração (fig. 5). Não foram identificados por TC critérios dimensionais compatíveis com hipertensão arterial pulmonar. As artérias brônquicas não apresentavam calibre aumentado.

Para confirmar que a malformação vascular detetada era exclusivamente de natureza arterial foi efetuada angiografia seletiva da 4^a à 7^a artérias intercostais esquerdas que, além de revelar aumento do calibre das artérias intercostais (figs. 9 e 10), demonstrou fístula exclusivamente arterial entre os ramos da circulação sistêmica acima referidos e o ramo esquerdo da artéria pulmonar através de novelo arterial (figs. 10 e 11). As artérias brônquicas, nomeadamente as do mesmo lado da malformação descrita, não foram avaliadas angiograficamente.

Até à data da realização da angiografia o doente permaneceu assintomático, não tendo sido ainda definida qual a abordagem terapêutica.

Discussão

As manifestações clínicas deste tipo de fístulas podem ser mal interpretadas como patência do ducto arterial ou presença de malformação arteriovenosa e os sintomas dependem, parcialmente, da sua repercussão funcional que



Figura 9 Angiografia seletiva da 4^a artéria intercostal esquerda revela aumento do calibre e tortuosidade da artéria intercostal.

é proporcional ao tamanho dos vasos implicados na anastomose e a sua localização em relação ao coração^{2,8}.

A radiografia de tórax deste tipo de malformações tipicamente revela, na área de conexão vascular anómala, irregularidade do bordo inferior das costelas e hipotransparência pulmonar, sugerindo envolvimento das artérias intercostais e/ou acentuação da vascularização e/ou infiltrado pulmonar (como representado no nosso caso clínico)³.

Nos casos descritos na literatura de FAA sistémico-pulmonares, as anastomoses são múltiplas e as malformações arteriovenosas podem estar presentes com concomitante repercussão cardiovascular³.



Figura 10 Angiografia seletiva da 7^a artéria intercostal esquerda demonstra, além de dilatação da artéria sistêmica referida, fístula exclusivamente arterial entre os ramos da circulação sistêmica e o ramo esquerdo da artéria pulmonar através de novelo arterial.

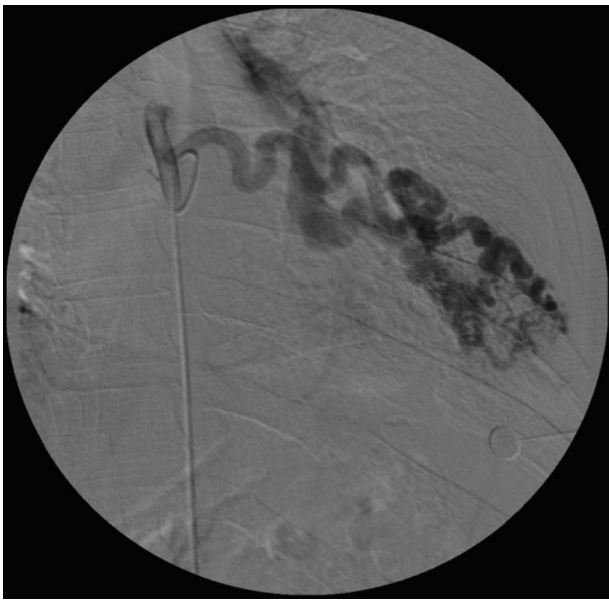


Figura 11 Angiografia seletiva da 7ª artéria intercostal esquerda revela anastomose exclusivamente arterial com artéria pulmonar homolateral.

No nosso caso clínico, imagiologicamente não parece existir repercussão cardiovascular uma vez que ICT (índice cardiorádico) e o calibre do tronco comum da artéria pulmonar estavam mantidos e a fístula era exclusivamente arterial, achado posteriormente confirmado angiograficamente que demonstrou anastomose exclusivamente arterial entre as artérias intercostais e a artéria pulmonar esquerdas.

Assim, o presente caso constitui um caso excepcional dos descritos na literatura nomeadamente no que toca a exuberância do shunt, padrão de drenagem (exclusivamente arterial) e sem repercussão funcional.

No que toca à terapêutica destas malformações, a embolização transcatheter arterial ou a ressecção cirúrgica podem ser consideradas como opções de tratamento, contudo, existem casos descritos de recorrência pós-embolização^{1,3,6}.

Conclusão

As FAA sistémico-pulmonares podem apresentar-se com ou sem sintomas e a sua etiologia pode ser secundária ou congénita.

Os autores apresentam caso excepcional, especialmente pela sua exuberância radiológica, de fístula exclusivamente

arterial entre as artérias intercostais e a artéria pulmonar, sem comunicações arteriovenosas. No nosso caso clínico, a presença de alterações parenquimatosas, como bronquiectasias e bronquiolectasias adjacentes ao novelo arterial, sugerem que pode ter existido história prévia de etiologia inflamatória/infeciosa.

Responsabilidades éticas

Proteção de pessoas e animais. Os autores declaram que para esta investigação não se realizaram experiências em seres humanos e/ou animais.

Confidencialidade dos dados. Os autores declaram ter seguido os protocolos de seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de pacientes e que todos os pacientes incluídos no estudo receberam informações suficientes e deram o seu consentimento informado por escrito para participar nesse estudo.

Direito à privacidade e consentimento escrito. Os autores declaram que não aparecem dados de pacientes neste artigo.

Bibliografia

1. Do K-H, Goo JM, Im J-G, Kim KW, Chung JW. Systemic arterial supply to the lungs in adults: spiral CT findings. *Radiographics*. 2001;21:387-402.
2. Fernández FJ, Montes PM, Alcibar J, Rodrigo D, Barranenetxea JI, Gotxi R. Percutaneous closure of complex fistula between the internal mammary artery and a lobar branch of a pulmonary artery. *Rev Esp Cardiol*. 2004;57:585-8.
3. Cantasdemir M, Kantarci F, Islak C, Kocer N, Saltuk L, Numan F. Transcatheter coil embolization of an intercostal artery to pulmonary artery fistula. *Eur Radiol*. 2002;12:454-7.
4. Chino M, Kawaguchi T. MD, Sakai T. MD, Okuno T. MD. Intercostal-to-pulmonary arterial anastomosis, complicated by high-output heart failure: Case report. *Angiology*. 1991;256-60.
5. Izumi S, Okamoto M. MD, Beppu S. MD, Park Y.-D. MD, Nagata S. MD, Miyatake K. MD, et al. Intercostal artery to pulmonary artery fistula. *Am J Cardiol*. 1984;54:688-9.
6. Mark B, Orringer, Hideki Itano, Sang Lee, David M, Kulick DM, et al. Williams nontraumatic chest wall systemic-to-pulmonary artery fistula. *Ann Thorac Surg*. 2005;79:29-31.
7. Voll A, Marstrand F, Wexels P. Systemic-pulmonary shunt. *Dis Chest*. 1966;45:396-401.
8. Sanders FH, Mahlon K.B. MD. Internal mammary artery-to-pulmonary artery fistulas: Case report and review of the literature. *Circulation*. 1980;62:1131-5.