

Fístula aorto-duodenal primaria. Caso clínico

Carolina Bonomo M.¹, Matías Ubilla S.¹, Sergio San Martín R.¹,
Luis Emilio Muse R.² y Ricardo Espinoza G.¹

Primary aorto-duodenal fistula. Clinical case

Introduction: Aorto-enteric fistulae (AEF) are a rare cause of gastrointestinal bleeding. The prognosis tends to be ominous, depending greatly in a high level of clinical suspicion and prompt diagnosis. **Clinical case:** We report a case of a 66-year-old female with a saccular juxta-renal abdominal aortic aneurysm (AAA), with a contained rupture. The patient was urgently submitted to surgical repair using an bifemoral aortic prosthesis. A duodenal partial resection was performed. During the immediate postoperative time she presented partial thrombosis of prosthesis and ischemia of lower extremities so she was reoperated successfully. **Discussion:** AEF is a potentially fatal cause of gastrointestinal bleeding. Diagnosis is still troublesome due to its vague presentation and it should always be considered when facing gastrointestinal haemorrhage with no apparent cause. There are several surgical approaches that should be pondered case to case without delaying the repair of the defect.

Key words: gastrointestinal haemorrhage; primary aorto-duodenal fistula; aorto-enteric fistula.

Resumen

Introducción: Las fistulas aorto-entéricas (FAE) son una causa infrecuente de hemorragia digestiva. El pronóstico, generalmente ominoso, depende de una alta sospecha clínica y diagnóstico oportuno. **Caso clínico:** Reportamos el caso de una mujer de 66 años intervenida por un aneurisma sacular aórtico abdominal (AAA) yuxtarenal, con rotura contenida, fistulizado al duodeno. Presentó una hemorragia digestiva en el preoperatorio; sin embargo, el diagnóstico de la fistula se hizo en el intraoperatorio. La paciente fue sometida a reparación quirúrgica urgente con instalación de una prótesis aórtica bifemoral y resección duodenal. En el postoperatorio inmediato presentó una trombosis parcial de las ramas de la prótesis aórtica e isquemia de extremidades, siendo reintervenida exitosamente. **Discusión:** La FAE es una causa potencialmente fatal de hemorragia digestiva. El diagnóstico continúa siendo un desafío debido a su presentación inespecífica y siempre debiese ser considerado frente a una hemorragia digestiva sin causa aparente. Existen varias opciones para el enfrentamiento quirúrgico que deben ser analizadas caso a caso, sin retrasar la reparación de la fistula. Es preferible la resección duodenal ante la simple duodenorrafia. **Palabras clave:** hemorragia gastrointestinal; fistula aorto-duodenal primaria; fistula aorto-entérica.

¹Departamento de Cirugía Facultad de Medicina y Servicio de Cirugía Clínica Universidad de los Andes.

²Servicio de Imágenes Clínica Universidad de los Andes. Santiago, Chile.

Recibido el 12 de noviembre de 2018 y aceptado para publicación el 10 de diciembre de 2018.

Correspondencia a:

Dr. Ricardo Espinoza G.
respinoza@clinicaandes.cl

Introducción

Las fistulas aorto-entéricas (FAE) corresponden a una comunicación patológica entre la aorta y una porción del tubo digestivo. La mayoría de estas fistulas son secundarias y se producen por la erosión de una prótesis aórtica al lumen intestinal^{1,2}. Las FAE primarias (FAEP) son fistulas en extremo infrecuentes, que también se pueden observar en el contexto de una aorta ateromatosa y aneurismática, como también en relación a un proceso inflamatorio localizado o a una infiltración por una neoplasia

maligna³. Por razones anatómicas, es el duodeno el segmento más afectado (60%), ya sea en su tercera o cuarta porción, el yeyuno (30%), pero también se ha reportado hasta un 5% de fistulas aortosigmoideas. Menos frecuentes aún son las FAEP al esófago o al estómago^{3,4}. En cualquiera de estos casos la primera manifestación puede ser una hemorragia digestiva, alta o baja, dependiendo del nivel en que se localice la fistula^{1,3,5-7}. El diagnóstico descansa en un alto índice de sospecha, siendo fundamental que se haga oportunamente, puesto que sin tratamiento la mortalidad es prácticamente del 100%^{1,2,5}. Presentamos el

CASOS CLÍNICOS

caso de una mujer de 66 años con una FAEP hacia el duodeno, en que el diagnóstico fue realizado en el intraoperatorio de la reparación del aneurisma aórtico, lo que ocurre hasta en dos tercios de los casos².

Caso Clínico

Paciente de 66 años, sexo femenino, con antecedente de hipertensión arterial y tabaquismo activo. Consultó en Hospital de Copiapó por dolor lumbar y escalofríos. Con diagnóstico de infección urinaria fue hospitalizada y por persistencia del dolor se realizó, primero un examen abdominal por ultrasonido y luego una tomografía computada (TC) de abdomen que revelaron, ambas, un aneurisma sacular aórtico abdominal (AAA) yuxtarenal, con rotura contenida (Figuras 1 y 2). La revisión de este último examen reveló la existencia de algunas burbujas de gas extraluminal en relación a la tercera porción del duodeno (Figura 3). Durante esa hospitalización

se observaron dos episodios de melena, sin que se realizara estudio endoscópico. En esas condiciones la paciente fue derivada a nuestro Centro, para su resolución. Acá se completó estudio con AngioTC que confirmó el AAA y que éste había crecido en relación al examen tomográfico previo; ahora presentaba 6,5 cm de eje mayor, con los mismos signos de rotura, sin compromiso de ramas aórticas viscerales. El cuello del aneurisma se localizaba a sólo 7 mm de la arteria renal izquierda, por lo que no se consideró apta para tratamiento endovascular. Con carácter de urgente, se sometió a reparación quirúrgica. En las horas previas a la cirugía la paciente volvió a presentar una melena autolimitada, sin compromiso hemodinámico. La exploración quirúrgica se vio dificultada por la presencia de un intenso proceso inflamatorio periaórtico al que adhería íntimamente la cuarta porción del duodeno. La disección dejó en evidencia una comunicación amplia entre el duodeno y el saco del aneurisma. Con control de la aorta a nivel suprarrenal se procedió a la colocación de una prótesis aórtica bifurcada, anastomosada proximalmente a nivel de las arterias renales y distalmente a las arterias ilíacas comunes. Se resecó el segmento duodenal fistulizado, con sutura del extremo duodenal; el segmento proximal del yeyuno fue liberado y se anastomosó de forma látero-lateral a la segunda porción del duodeno (Figuras 4 y 5). Se dejó un

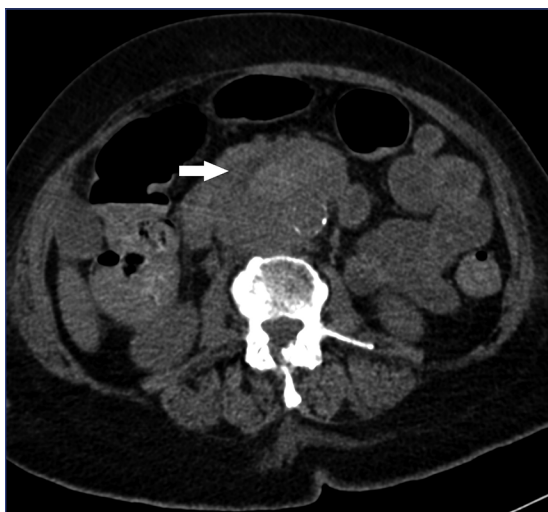


Figura 1. Tomografía axial donde se observa un aneurisma de la aorta abdominal infrarrenal de tipo sacular (flecha), asociado a una ateromatosis difusa.

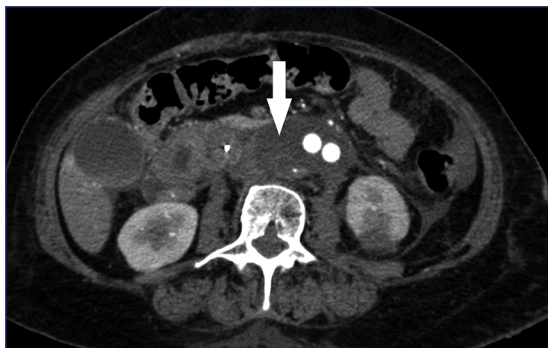


Figura 2. En la tomografía axial se observa un contenido periaórtico hiperdenso, compatible con un hematoma, secundario a la rotura de la aorta (flecha).



Figura 3. En este corte tomográfico se observa gas periaórtico (flecha), en íntimo contacto con la tercera porción del duodeno, el que se encuentra engrosado y con contenido hiperdenso.

drenaje aspirativo cerrado periaórtico y se peritonizó completamente la prótesis.

El postoperatorio inmediato se vio complicado por una trombosis parcial de las ramas de la prótesis aórtica e isquemia de las extremidades, por lo que fue reintervenida exitosamente. Posteriormente, cursó con febrículas esporádicas, sin demostrarse foco séptico intraabdominal; no obstante, se mantuvo cobertura antibiótica de amplio espectro por tres semanas. Fue dada de alta luego de 28 días de hospitalización y controlada posteriormente a los 40 días se encontraba activa y en buenas condiciones. No tenemos seguimiento más alejado de la paciente pues regresó a su ciudad de origen.

El estudio histopatológico del segmento duodenal resecado confirmó una solución de continuidad de la pared intestinal con tejido granulatorio y exudado fibrino leucocitario.

Discusión

El diagnóstico y tratamiento de una FAE continúa siendo un desafío y se cuenta entre aquellas condiciones que ponen en alto riesgo la vida de un paciente. Desde el primer reporte de un caso de una FAEP por Astley P. Cooper en 1829, la incidencia descrita de FAEP varía entre un 0,02 y un 0,07%, elevándose hasta el 1% en el caso de las secundarias^{2,3}. Hasta la actualidad se han reportado alrededor de 350 casos de FAEP, de las cuales 200 son duodenales⁸. El enfrentamiento diagnóstico se ve dificultado por la baja incidencia y, por lo tanto, la poca experiencia que logra tener un médico a lo largo de su vida laboral frente a estos casos. Una co-



Figura 4. En este corte tomográfico postquirúrgico, se aprecia la reparación de la aorta rodeada de un hematoma residual organizado (flecha).

municación holandesa revela que casi el 70% de los cirujanos consultados nunca había visto un paciente con una FAEP⁹.

La sospecha se hace aún más compleja debido a la presentación inespecífica y variable de las FAEP. La clásica tríada sintomática de hemorragia digestiva (80%), dolor abdominal (32%) y masa abdominal pulsátil (25%), se encuentra en no más del 11% de los casos^{1,2,7}. Las FAEP son más difíciles de

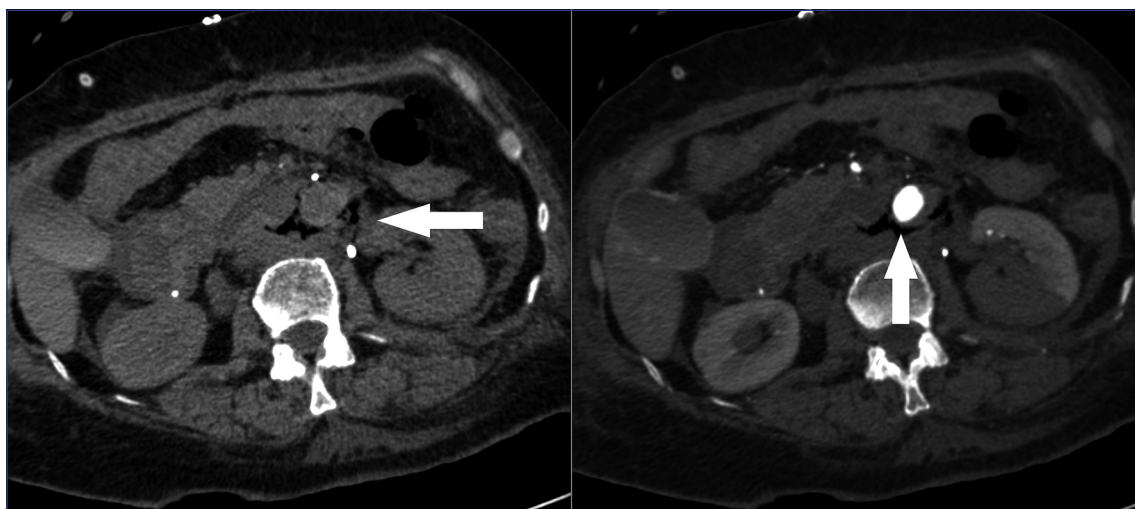


Figura 5. Tomografía que demuestra el cierre de la fístula aorto-duodenal (flecha), con leve edema mural.

CASOS CLÍNICOS

sospechar al no existir el antecedente de una cirugía aórtica previa con la consecuente presencia de una prótesis en esa localización. La hemorragia digestiva, de presentarse, puede ser oculta, intermitente o masiva¹. En la mayoría de los casos se presenta un sangrado centinela que precede a un sangrado masivo exanguinante, pudiendo existir entre ambos un intervalo de horas a meses, pero en la mitad de los casos es de más de 24 h, de modo que puede dar tiempo para su control¹. Por tanto, debiera ser considerado el diagnóstico de una FAEP frente a una hemorragia gastrointestinal sin causa aparente^{5,7,10}. Es importante considerar en estos casos que el rendimiento de la endoscopia digestiva alta es inferior al 25%, porque la fistula se localiza habitualmente en el duodeno distal¹. Otros síntomas y signos que se pueden presentar son dolor lumbar, fiebre y sepsis³. La edad promedio de presentación es de 64 años, y se observa tres veces más frecuentemente en mujeres que en hombres¹¹.

El diagnóstico se basa en la sospecha clínica, siendo útiles en la comprobación la tomografía computada de abdomen (TC) y el ultrasonido con dúplex^{1-3,8,11}. La TC tiene una sensibilidad de entre un 50% y un 94%, con una especificidad de entre el 85 y el 100%. Los signos más habituales para hacer el diagnóstico son la desaparición de los planos periaórticos y el engrosamiento de asas intestinales adyacentes a la aorta; pero más categóricos son la presencia de fluido o gas en localización periaórtica y la extravasación de medio de contraste desde la aorta al lumen intestinal, aun cuando esto último se observe sólo en el 11% de los pacientes^{1,2}.

El tratamiento habitual de una FAEP ha sido

siempre quirúrgico. Actualmente la reparación aórtica puede ser efectuada por técnica endovascular, con una menor morbilidad precoz asociada; no obstante, la sobrevida a largo plazo es similar entre ambas técnicas, dada por sepsis persistente y recurrencia de la fistula en el grupo de manejo endovascular^{2,3,12}. En ocasiones, el manejo endovascular o los puentes extra-anatómicos pueden ser alternativas antes de una reparación abierta definitiva, especialmente cuando existe inestabilidad hemodinámica grave^{2,11}.

Aún reparada, la mortalidad de una FAEP bordea el 40%^{3,11}, siendo la principal causa la recurrencia de la fistula con infección local y sepsis persistente, complicación que se observa más frecuentemente cuando se ha efectuado una duodenorrafia simple^{1,8}. Es por esto último, que los autores enfatizan la importancia de la interposición de omento al momento de la reparación o la resección duodenal². En nuestra paciente se optó por la resección del segmento fistulizado, con buena evolución postoperatoria.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Conflictos de interés: no hay.

Referencias

- Guner A, Mentese U, Kece C, Kucuktulu U. A rare and forgotten diagnosis of gastrointestinal bleeding: primary aortoduodenal fistula. *BMJ Case Rep*. [Internet] 2013 [04-06-2018]; nr. Disponible en: 10.1136/bcr-2013-008712.
- Beuran M, Negoï I, Negoï R, Hostiu S, Paun S. Primary Aortoduodenal Fstula: First You Should Suspect It. *Braz J Cardiovasc Surg* [Internet] 2016 [06-06-2018];31:261-3. Disponible en: 10.5935/1678-9741.20160049.
- Behrendt C, Wipper S, Debus S, Kodolitsch Y, Puschel K, Kammal M, et al. Primary aorto-enteric fistula as a rare case of massive gastrointestinal haemorrhage. *BMJ Case Rep*. [Internet] 2018 [08-06-2018];46:425-6. Disponible en: doi.org/10.1024/0301-1526/a000646.
- Khalaf C, Houlind K. Case report: primary aortosigmoid fistula-a rare cause of lower gastrointestinal bleeding. *International Journal of Surgery Case Rep* [Internet] 2017 [04-06-2018];40:20-2. Disponible en: dx.doi.org/10.1016/j.ijscr.2017.08.063.
- Sumskiene J, Sveikauskaite E, Kondrackiene J, Kupcinskas L. Aorto-duodenal fistula: a rare but serious complication of gastrointestinal hemorrhage. A case report. *Acta medica Lituanica* [Internet] 2016 [08-06-2018];23:165-4. Disponible en: https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC5287988/.
- Acosta A, Karatanasopuloz R, Haydar C, Levy G, Martín C, Paiz M. Fistula aortoentérica como causa de hemorragia digestiva en tres pacientes adultos. *Med Intensiva* [Internet] 2006 [05-06-2018];30:120-2. Disponible en: http://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0210-56912006000300007.
- Bala M, Sosna J, Appelbaum L, Israeli E, Rivkind A. Enigma of primary aortoduodenal fistula. *World J Gastroenterol*. [Internet] 2009 [02-07-2018];15:3191-3. Disponible en: http://dx.doi.org/10.3748/wjg.15.3191.
- Rodrigues C, Casca R, Mendes J, Mendes-Pedro L. Enteric repair in aortoduodenal

- fistulas: a forgotten but often lethal player. *Ann Vasc Surg.* [Internet] 2014 [09-06-2018];28:756-62. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2013.09.004>.
9. Voorhoeve R, Moll F, Bast T. The primary aortoenteric fistula in The Netherlands- The unpublished cases. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* [Internet] 1996 [12-06-2018];11:429-3. Disponible en: [https://www.ejves.com/article/S1078-5884\(96\)80176-6/pdf](https://www.ejves.com/article/S1078-5884(96)80176-6/pdf).
 10. Gordon A, Agarwal M. Primary aortoenteric fistula. *International Journal of Surgery Case Rep.* [Internet] 2016 [08-06-2018];19:60-2. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijscr.2015.12.009>.
 11. Varetto G, Gibello L, Trevisan A, Castagno C, Garneri P, Rispoli P. Primary aortoenteric fistula of a saccular aneurysm: case study and literature review. *Korean Circ J.* [Internet] 2015 [02-07-2018];45:337-3. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.4070/kcj.2015.45.4.337>.
 12. Burks J, Faries P, Gravereaux E, Hollier L, Marin M. Endovascular repair of bleeding aortoenteric fistulas: a 5-year experience. *J Vasc Surg.* [Internet] 2001 [02-07-2018];34:1055-9. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1067/mva.2001.119752>.