

Fístula arterio esofágica: complicación en un paciente con atresia de esófago de cabos distantes tratado con ascenso gástrico parcial

Dres. M. Rubio, M. Boglione, L. Korman, J. Cornelis y M. Barrenechea
Servicio de Cirugía General, Hospital Nacional de Pediatría Prof. Dr. Juan P. Garrahan,
Buenos Aires, Argentina.

Resumen

La atresia de esófago de cabos distantes puede resolverse con técnicas de preservación o de reemplazo esofágico, esta última tanto por vía retroesternal o por vía mediastinal posterior. Según nuestra experiencia, realizamos el ascenso gástrico parcial con los principios de Schärli por vía mediastinal posterior para reemplazar el esófago. La fístula vascular arterial esofágica más frecuentemente descrita en la literatura es la aorto esofágica, ya sea congénita (anillos vasculares) o adquirida (ingesta de cuerpos extraños). El diagnóstico es tardío y el tratamiento se realiza generalmente en un paciente en mal estado general. La fístula aortoesofágica es una causa infrecuente de hemorragia digestiva y casi siempre es fatal.

Presentamos un paciente de un año y cinco meses de vida con diagnóstico de atresia de esófago tipo III de cabos distantes, al que le realizamos un reemplazo esofágico por medio de un ascenso gástrico parcial por vía mediastinal posterior. Presenta como complicación en el postoperatorio, una hemorragia digestiva severa con descompensación hemodinámica, producto de una fístula de la arteria carótida derecha al esófago cervical. El niño presentaba una subclavia derecha última rama no diagnosticada. Se le realizó tratamiento quirúrgico de urgencia con éxito.

Palabras clave: Atresia de esófago - Reemplazo - Fístula aortoesofágica

Summary

The atresia of the esophagus of distant capes can be resolved with preservation or esophageal replacement techniques, the latter either retrosternally or through the posterior mediastinal route. In our experience, we performed the partial gastric ascent with the Schärli principles via the posterior mediastinal route to replace the esophagus. The esophageal arterial vascular fistula most frequently described in the literature is the esophageal aorto, either congenital (vascular rings) or acquired (foreign body ingestion). The diagnosis is delayed and the treatment is usually performed in a patient in poor general condition. Aortoesophageal fistula is an uncommon cause of gastrointestinal bleeding and is almost always fatal.

We present a patient of one year and five months with diagnosis of type III atresia distant ends of the esophagus, which will perform an esophageal replacement by a partial ascent via gastric posterior mediastinum. It presents as a complication in the postoperative period, a severe digestive hemorrhage with hemodynamic decompensation, product of a fistula of the right carotid artery to the cervical esophagus. The child presented a right subclavian last branch not diagnosed. He underwent emergency surgical treatment successfully.

Index words: Esophageal atresia - Replacement - Aortoesophageal fistula

Resumo

A atresia do esôfago de capas distantes pode ser resolvida com técnicas de preservação ou de substituição esofágica, estas últimas por vía retroesternal ou pela vía mediastinal posterior. Em nossa experiência, realizamos a subida gástrica parcial com os princípios de Schärli através da vía mediastinal posterior para substituir o esôfago. A fístula vascular arterial esofágica mais frequentemente descrita na literatura é a aorta esofágica, congênita (anéis vasculares) ou adquirida (ingestão de corpo extraño). O diagnóstico é atrasado e o tratamento é geralmente realizado em um paciente em mau estado geral. A fístula aorto-esofágica é uma causa incomum de sangramento gastrointestinal e é quase sempre fatal.

Apresentamos um paciente de um ano e cinco meses com diagnóstico do tipo III atresia extremidades distantes do esôfago, que irão realizar uma substituição do esôfago por uma subida parcial via mediastino posterior gástrico. Como uma complicação após a cirurgia, gastrointestinal grave sangramento com descompensação hemodinâmica, resultante de uma fístula da artéria carótida direita para o esôfago cervical. A criança apresentou uma subclávia direita no último ramo não diagnosticada. Ele foi submetido a tratamento cirúrgico de emergência com sucesso.

Palavras-chave: Atresia de esôfago - Substituição - Fístula aortoesofágica

Introducción

La atresia de esôfago de cabos distantes puede resolverse mediante técnicas de preservación^{1,2} o de reemplazo esofágico³⁻⁵, esto último puede realizarse por vía retroesternal o por vía mediastinal posterior. La fístula vascular arterial esofágica más frecuentemente descrita en la literatura es la aorta esofágica, ya sea congénita o adquirida⁶⁻¹⁰, tanto en población pediátrica como en adultos^{11,12}. El diagnóstico suele ser tardío y el tratamiento se realiza generalmente en un paciente en mal estado general⁶.

Presentamos un paciente de un año y cinco meses de vida con diagnóstico de atresia de esôfago de cabos distantes, al que le realizamos un reemplazo esofágico por medio de un ascenso gástrico parcial por vía mediastinal posterior, que presenta como complicación en el postoperatorio, una fístula de la arteria carótida derecha al esôfago, tratada con éxito.

Presentación del caso

Se trata de un paciente de sexo masculino recién nacido de término (38 semanas de gestación) con peso al nacimiento de 2750 gramos, segundo gemelar. Se diagnostica al nacimiento asociación VACTER: atresia de esôfago tipo III, costillas fusionadas, hemivertebras, dextrocardia y agenesia pulgar.

Se realiza al tercer día de vida una toracoscopia con cierre de fístula traqueo esofágica y ante la imposibilidad para unir ambos cabos esofágicos (cabos distantes), se decide realizar el cierre

del esôfago inferior, esofagostomía terminal derecha y una gastrostomía (GTT).

Se realiza la medición de cabos esofágicos (MCE) al cuarto mes postoperatorio (POP): evidenciando una distancia de 6 cuerpos vertebrales entre ambos cabos esofágicos (Figura 1). Se indica ascenso gástrico parcial según principios de Schärli, el cual se realiza al año y 5 meses de vida (Figura 2) por vía mediastinal posterior sin toracotomía, con una anastomosis cervical esôfago esofágica en un plano con puntos separados de polidioxanona 4/0 a pared total. Se coloca una

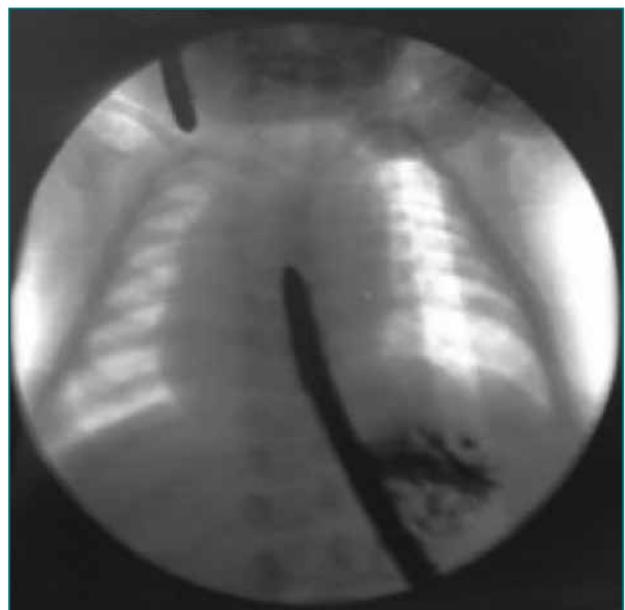


Figura 1. Medición de cabos esofágicos (6 cuerpos vertebrales de distancia).

sonda transanastomótica (SNG), no se desmonta la GTT y se coloca un dispositivo de gastro yeyunostomía.

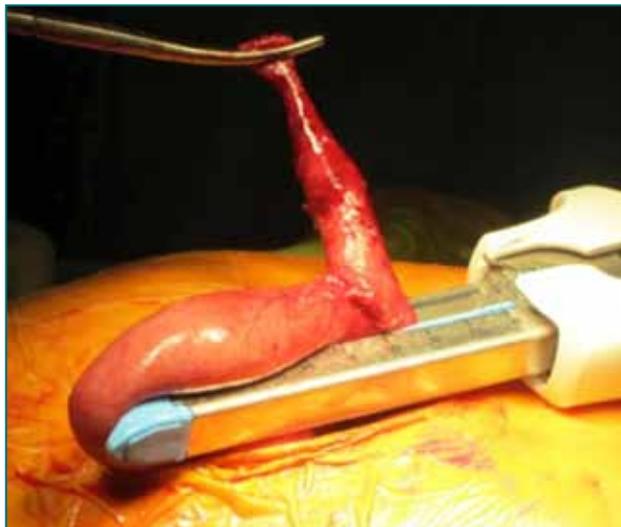


Figura 2. Ascenso gástrico parcial según principios de Schärli con elongación de la curvatura menor gástrica.

En la unidad de cuidados intensivos (UCI), al segundo día POP presenta un neumotórax derecho, que requiere drenaje pleural por dos días. Se realiza la extubación traqueal electiva al sexto día POP y comienza con alimentación yeyunal.

Al noveno día POP evoluciona con una dehiscencia de la anastomosis esofágica con salida de saliva por la cervicotomía (fistula esófago cutánea). La misma cierra en forma espontánea a los 16 días. Pasa a la sala de cuidados intermedios al 25° día POP y se coloca el botón de GTT.

Al 26 día POP presenta una hematemesis sin descompensación con salida de sangre roja por la GTT y por la SNG, cuadro que se auto limita. El esofagograma de control al 27° día POP: muestra una estrechez concéntrica en el área de la anastomosis, discreta dilatación esofágica proximal y correcto pasaje hacia distal, sin fuga del material de contraste. Se retira la SNG e inicia la tolerancia por vía oral.

En el 28° día POP, presenta un shock hipovolémico secundario a una segunda hemorragia digestiva alta, con hematemesis, salida de sangre rojo rutilante por GTT y melena. El paciente responde inicialmente a la reposición de volumen hidrosalino. El laboratorio muestra una hemoglobina de 7.1 g/dl (con una previa de 12.5 g/dl). Requiere una transfusión de glóbulos rojos

(TGR) y se realiza un video endoscopia digestiva alta (VEDA) de urgencia (**Figura 3**) donde se evidencia en el estómago abdominal la presencia de importante cantidad de coágulos, sin evidenciar sitio de sangrado activo.



Figura 3. VEDA, coágulos en el interior del estómago abdominal.

Luego de la VEDA, el paciente presenta nuevamente un shock hipovolémico, que requiere TGR y goteo continuo de omeprazol y octeotride endovenoso. Ingres a UCI y a las pocas horas regresa a quirófano donde se realiza una nueva VEDA (30 días POP), evidenciando en la cavidad gástrica abdominal un importante coagulo organizado que se lava y aspira. No se observa sitio activo de sangrado ni lesión ulcerosa. A nivel de repliegues gástricos en el ingreso a cavidad gástrica abdominal persiste luego de abundante lavado sitio con erosión con punto rojo sin sangrado activo y se colocan tres clips hemostáticos.

Al no mejorar el niño su estado general, se decide realizar una laparotomía de urgencia. Se realiza una gastrotomía con extracción de coagulo y se observa sangrado proveniente del estómago ascendido. En ese momento el paciente presenta una bradicardia extrema que responde a inotrópicos. Se realiza una cervico-esternotomía mediana. En la disección cervical derecha, se evidencia la arteria carótida adherida a cara anterior de anastomosis esofágica. Se diagnostica una fistula esófago arterial. Se repara arteria carótida y se reavivan bordes esofágicos previamente abiertos y se sutura en forma transversal, con

interposición de timo entre ambas suturas. Se identifica una arteria subclavia derecha aberrante (última rama) no diagnosticada previamente.

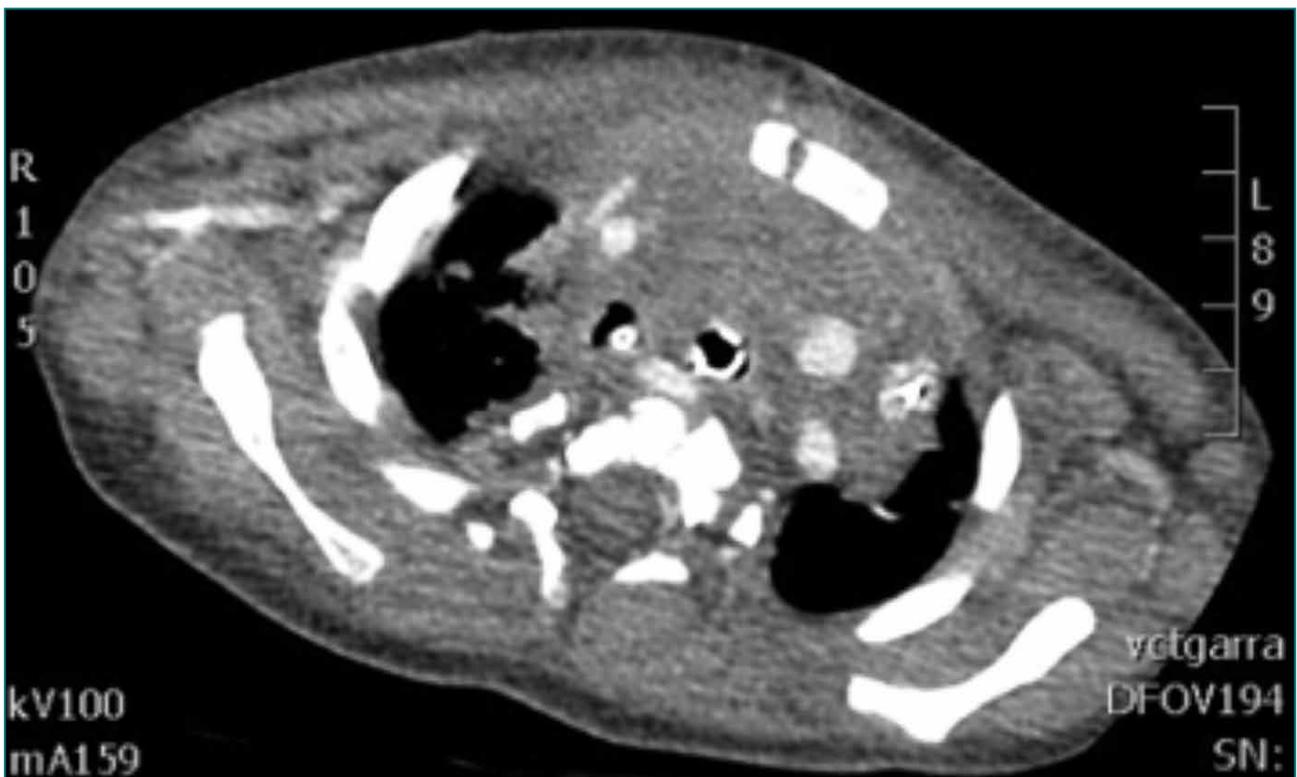
El niño cursa con buena evolución, realizando tratamiento con antiagregantes plaquetarios.

Ya en la sala de cuidados intermedios a los dos meses posteriores al reemplazo esofágico, el esofagograma de control: (Figura 4) no muestra complicaciones, con egreso hospitalario tolerando alimentación por vía oral y por GTT.

Se realiza una angiotomografía computada evidenciando la arteria subclavia derecha aberrante (última rama) (Figura 5).

Figura 4. esofagograma control sin complicaciones de la anastomosis.

Figura 5. Angiotomografía computada: evidencia de subclavia derecha aberrante (última rama) por detrás de ascenso gástrico (flecha negra).



A los 6 meses POP, reingresa por un cuadro de oclusión intestinal que requiere cirugía exploradora, encontrando abundantes adherencias entero entéricas, siendo una de ellas la causa de la oclusión. Luego de una enterolisis amplia, también se reseca un divertículo de Meckel no complicado y se realiza apendicetomía incidental.

Actualmente el paciente tiene 5 años de edad, se encuentra asintomático desde el punto de vista digestivo y respiratorio, con buen desarrollo ponderoestatural y recibe alimentación exclusiva por vía oral acorde a edad, recibiendo inhibidores de la bomba de protones como medicación diaria.

Discusión

La atresia de esófago de cabos distantes puede tratarse con técnicas de preservación de esófago nativo^{1,2} o con un reemplazo esofágico³⁻⁵. Dentro de las primeras, las más difundidas son las técnicas de anastomosis primaria diferida con espera del crecimiento espontáneo esofágico y la técnica de elongaciones secuenciales extratorácicas. Al reemplazar el esófago se utiliza el colon, el intestino delgado o el estómago, ya sea en forma parcial por vía retroesternal o total por la vía mediastinal posterior. No existe un consenso claro de que alternativa utilizar.

En nuestro servicio, normatizamos el uso de la MCE con sondas metálicas para elegir entre técnicas de preservación o de reemplazo esofágico. Utilizamos preferentemente el ascenso gástrico parcial según principios de Schärli⁴ por vía mediastinal posterior.

La fístula aorto-esofágica es una causa infrecuente de hemorragia digestiva, generalmente fatal^{6,8,11,12}. Puede ser adquirida, como consecuencia de la ingesta de cuerpos extraños, absceso paraesofágico, mediastinitis, presencia de sutura en la aorta en contacto con el esófago como en cirugías cardiovasculares; o congénita (anillos vasculares, asociado con asistencia respiratoria mecánica y sonda nasogástrica de manera prolongada)⁶⁻⁹. En 1914, Chiari describió una tríada sobre esta entidad: dolor en el tórax medio, hemorragia arterial centinela y un intervalo asintomático de horas o meses seguido de un sangrado fatal^{6,11,12}. Excepto el dolor torácico, nuestro paciente presentó los otros dos eventos, con un intervalo asintomático de 48 horas. La primera hemorragia probablemente corresponda al sangrado centinela y la segunda, al sangrado exanguinante. En la mayoría de los casos, el sangrado

inicial cede en forma espontánea (por hipotensión severa), y en este momento se debe actuar con rapidez para diagnosticar el evento seguido de una cirugía inmediata^{6,7}.

Los anillos vasculares causan sangrado al producir erosión en el sitio donde se encuentra una sonda nasogástrica de manera prolongada^{6,7}. La presencia de anillos vasculares, a menudo es desconocida, como en nuestro caso.

Generalmente la endoscopia digestiva alta y la aortografía, no evidencian un sangrado activo⁸. La radiografía simple de tórax y el ecocardiograma pueden diagnosticar cuerpos extraños y posibles anomalías vasculares⁶.

Dependiendo del estado general del paciente, puede indicarse una arteriografía o una tomografía computada, pero no debe retrasar la cirugía de urgencia. Otros autores recomiendan la resonancia nuclear magnética, ante la sospecha de anillos vasculares⁹.

Al utilizar la ruta mediastinal posterior en este caso, el tubo digestivo ascendió entre dos vasos que forman un anillo vascular incompleto no conocido (arteria carótida derecha y subclavia derecha última rama). Creemos que esta anatomía actúa predisponiendo al desarrollo de esta complicación debido al decúbito de la SNG prolongada con la sutura digestiva y la pared vascular, como se describe en la literatura.

Luego de este caso, en nuestro servicio, todo paciente con diagnóstico de atresia esofágica de cabos distantes, que sea sometido a un ascenso gástrico, se realiza una angiotomografía computada previa al reemplazo esofágico, para elegir la vía de ascenso. Si el estudio evidencia un anillo vascular, se opta por la ruta retroesternal y se evita la ruta mediastinal posterior.

Según los antecedentes del paciente, ante un sangrado de estas características en el postoperatorio, se debe realizar resucitación vigorosa endovenosa con solución fisiológica, cristaloides, glóbulos rojos, plaquetas y plasma fresco congelado hasta la exploración quirúrgica⁶. Algunos autores recomiendan no retirar la sonda nasogástrica (actúa como taponaje) o indican la colocación del balón de Sengstaken-Blakemore⁷⁻¹².

Puede realizarse una VEDA en el quirófano, pudiendo decidir el abordaje abdominal, torácico o cervical, pero no debe retrasar la resolución quirúrgica. Se recomienda la apertura del esófago para evidenciar el sitio de sangrado y luego de resolver con suturas ambas estructuras afectadas, interponer tejido entre ambas suturas, como

un parche pediculado de pleura o pericardio para evitar recurrencia⁶⁻¹⁰. Nosotros interpusimos tejido tímico. El segmento vascular afectado puede reemplazarse con material protésico^{11,12}.

No existen casos descriptos de sobrevivientes con el manejo no quirúrgico¹². Cabe destacar que en la literatura adulta, se describe el uso de la embolización percutánea y el tratamiento endovascular¹¹ en pacientes hemodinámicamente estables.

Ante la presencia de factores de riesgo para este evento, se recomienda la extracción rápida de cuerpos extraños en el esófago y evitar intubaciones prolongadas, tanto traqueales como nasogástricas⁶.

La mayoría de los casos publicados, describen fistulas aortoesofágicas. En nuestro paciente se trató de una fistula entre la arteria carótida y el esófago cervical. No encontramos en la literatura este tipo de complicación en el postoperatorio de un reemplazo esofágico.

En un niño con hemorragia digestiva de sangre roja rutilante en el postoperatorio de una cirugía vascular (especialmente de anillo vascular) o esofágica, asociado a intubación traqueal y nasogástrica en forma prolongada, debe ser sospechada con rapidez la posibilidad de una fistula arterioesofágica y se recomienda exploración inmediata para evitar el desenlace fatal.

Bibliografía

1. Friedmacher F and Puri P: Delay primary anastomosis for management of long gap esophageal atresia: a meta-analysis of complications and long-term outcome. *Pediatr Surg Int* 28:899-906, 2012.
2. Kimura K, Soper R: Multistaged extrathoracic esophageal elongation for long gap esophageal atresia. *J Pediatr Surg* 29: 556-568, 1994
3. Spitz L: Gastric transposition for oesophageal replacement. *Pediatr Surg Int* 11: 218-220, 1996.
4. Schärli A: esophageal reconstruction in very long atresias by elongation of the lesser curvature. *Pediatr Surg Int* 7: 101-105, 1992.
5. Tannuri U, Maksoud Filho J, Maksoud J: Esophagocoloplasty in Children: Surgical Technique, With Emphasis on the Double Blood Supply to the Interposed Colon, and Results. *J Pediatr Surg* Vol 29, (11): 1434-1438, 1994.
6. Sigalet D, Laberge J, Di Lorenzo M et al: Aortoesophageal Fistula: Congenital and Acquired Causes. *J Pediatr Surg* Vol 29, (9): 1212-1214, 1994.
7. McKeating J, Smith S, Kochanck P et al: Fatal Aorto esophageal Fistula Due to Double Aortic Arch: An Unusual Complication of Prolonged Nasogastric Intubation. *J Pediatr Surg* Vol 25, (12): 1298-1300, 1990.
8. D'Angelis A, Questa H, Prieto F. et al: Successful Surgical Treatment of a 4-Month Infant After Exanguination for Aortoesophageal Fistula. *J Pediatr Surg* 41: 848-849, 2006.
9. Othersen H, Khalil B, Zellner J et al: Aortoesophageal Fistula and Double Aortic Arch: Two Important Points in Management. *J Pediatr Surg* 31 (4): 594-595, 1996.
10. McComas B, Miles P and Katz B: Successful Salvage of an 8-Month-Old Child With an Aortoesophageal Fistula. *J Pediatr Surg* 26 (12): 1394-1395, 1991.
11. Flores J, Shiiya N, Kuniyama T, et al: Aortoesophageal Fistula: Alternatives of Treatment. Case Report and Literature Review. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 10 (4): 241-246, 2004.
12. Hollander J, and Quick G: Aortoesophageal Fistula: A Comprehensive Review of the literature. *Am J Med* 91: 279-287, 1991.

Trabajo enviado para evaluación en mayo de 2019.

Aceptado para publicación en junio de 2019.

Dr. M. Rubio
martinrubio86@hotmail.com
Buenos Aires, Argentina