

Tratamento endovascular de aneurisma de aorta abdominal com fístula aorto-cava utilizando oclusor vascular concomitante a endoprótese bifurcada: relato de caso

Endovascular treatment of an abdominal aortic aneurysm with aortocaval fistula using a vascular occluder and a bifurcated endograft in a single intervention: case report

Bruno Lorenção de Almeida¹, Fabio Henrique Rossi¹, Thiago Osawa Rodrigues¹, Leandro Berutto Ahouagi¹, Sthefanie Fauve Andrade Cavalcante¹, Camila Bauman Beteli¹, Carlos Augusto Cardoso Pedra¹, Antônio Massamitsu Kambara¹

Resumo

As fístulas aorto-cava são entidades raras e de etiologia variada, estando frequentemente associadas a significativa morbimortalidade. Acredita-se que o aumento da tensão da parede nos grandes aneurismas resulte em reação inflamatória e aderência à veia adjacente, culminando na erosão das camadas aderidas e na formação da fístula. O tratamento cirúrgico convencional tem altas taxas de mortalidade. Embolia pulmonar paradoxal e o vazamento são complicações temidas do tratamento endovascular. O uso de oclusor vascular associado a endoprótese bifurcada é boa opção no tratamento do aneurisma de aorta abdominal com fístula aorto-cava.

Palavras-chave: aneurisma aórtico; fístula aorto-cava; procedimentos endovasculares.

Abstract

Aortocaval fistulae are rare entities with a variety of etiologies and are very often associated with significant morbidity and mortality. It is believed that increased tension in the walls of large aneurysms can cause an inflammatory reaction resulting in adhesion to the adjacent vein and culminating in erosion of the adherent layers and fistula formation. Conventional surgical treatment has high mortality rates. Paradoxical pulmonary embolism and endoleaks are the most concerning complications linked with endovascular treatment. Using a vascular occluder in combination with a bifurcated endograft is a good option for the treatment of an abdominal aortic aneurysm with aortocaval fistula.

Keywords: aneurysm aortic; aortocaval fistula; endovascular procedures.

¹Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia – IDPC, São Paulo, SP, Brasil.

Fonte de financiamento: Nenhuma.

Conflito de interesse: Os autores declararam não haver conflitos de interesse que precisam ser informados.

Submetido em: Novembro 23, 2016. Aceito em: Abril 03, 2017.

O estudo foi realizado no Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC), São Paulo, SP, Brasil.

■ INTRODUÇÃO

As fistulas aorto-cava são entidades raras e de etiologia variada associadas a significativa morbimortalidade. A imensa maioria resulta da erosão ou ruptura de aneurismas da aorta abdominal para a veia cava inferior. O objetivo deste artigo é apresentar o tratamento endovascular de um caso de fistula aorto-cava em paciente com aneurisma de aorta abdominal utilizando oclusor vascular associado a uma endoprótese bifurcada.

■ DESCRIÇÃO DO CASO

Paciente masculino, 71 anos, tabagista e ex-etilista, com diagnóstico de aneurisma de aorta abdominal infrarrenal há 15 anos, sem acompanhamento regular, foi encaminhado ao Serviço de Cirurgia Endovascular de nossa instituição para avaliação e possível tratamento. Relatou aparecimento de massa abdominal pulsátil, associada a dor abdominal difusa, intermitente e de longa data. Referia ainda edema de membros inferiores há 8 meses, adinamia e emagrecimento de 20 kg nos últimos 6 meses. Ao exame, apresentava massa pulsátil em mesogástrico, com abdome difusamente doloroso à palpação e com presença de frêmito em flanco esquerdo.

Ultrassonografia abdominal com Doppler colorido demonstrou aneurisma de aorta abdominal com 9,7 cm de diâmetro com presença de trombo mural e trombos móveis em sua luz (Figura 1). Na parede posterolateral direita, observou-se fluxo de alta

velocidade, sugerindo fistula arteriovenosa com 5 mm de diâmetro, comunicando o aneurisma com a veia cava inferior. Angiotomografia de aorta evidenciou dilatação aneurismática, fusiforme da aorta abdominal infrarrenal estendendo-se até a bifurcação das artérias ilíacas comuns e medindo 9,2 cm, além da presença de comunicação entre aorta abdominal e veia cava inferior em sua parede posterolateral direita medindo cerca de 8 mm de diâmetro e localizada 2 cm acima da bifurcação ilíaca (Figura 2). Notou-se ainda aumento de câmaras cardíacas direitas e derrame pleural com atelectasia de lobos pulmonares inferiores bilateralmente. Apesar da presença de dilatação das câmaras cardíacas na tomografia, o ecocardiograma evidenciou aumento atrial discreto e função cardíaca preservada.

Optamos pelo tratamento endovascular com endoprótese bifurcada e oclusor vascular, após consentimento do paciente, dada a menor morbimortalidade e condições anatômicas e clínicas favoráveis à realização do procedimento. O tratamento se iniciou pela dissecação bilateral das artérias femorais comuns e pelo posicionamento de introdutor valvulado 6F bilateralmente, sob anestesia geral e monitorização cardiopulmonar. Foi realizada punção de veias femorais comuns e foram posicionados introdutores valvulados 5F bilateralmente. Foi posicionado cateter Pigtail centimetrado na aorta abdominal pelo acesso arterial direito e fio guia Lunderquist 0,035, 300cm pelo acesso arterial esquerdo, para retificação da anatomia aórtica.

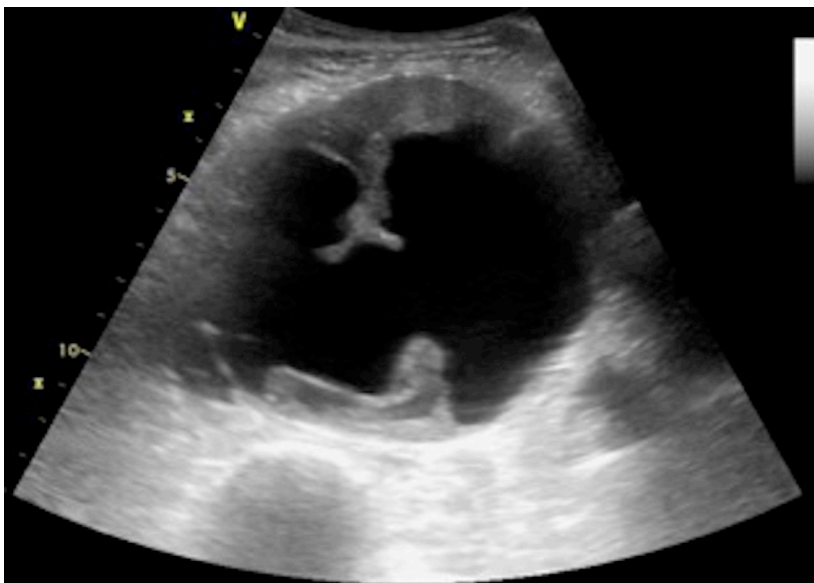


Figura 1. Aneurisma abdominal com imagem de trombos murais ao ultrassom em modo B.

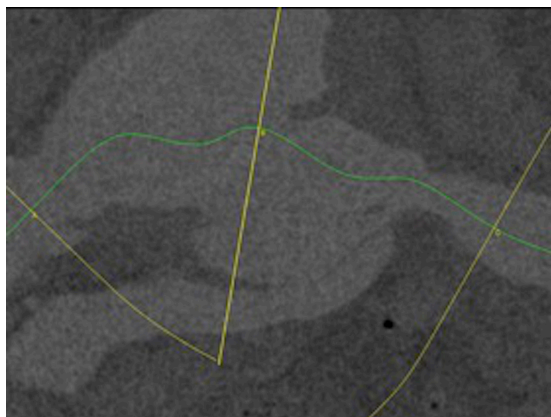


Figura 2. Aneurisma de aorta abdominal com fistula aorto-cava à angiogramia.

Realizou-se flebografia inicial, que evidenciou circulação colateral exuberante, proveniente das veias ilíacas internas, compressão extrínseca da veia cava inferior no seu segmento distal – pelo aneurisma adjacente – e imagem compatível com fistula artério-venosa nessa topografia (Figura 3). Foi realizada cateterização do trajeto fistuloso pelo acesso venoso direito com cateter JR diagnóstico 5F e guia hidrofílico 0,035, posteriormente trocado por guia Amplatz extra stiff 0,035, 260cm. Uma bainha Flexor Check-Flo 12F 45cm (Cook) foi posicionada através do orifício da fistula, pelo acesso venoso direito. Nesse momento, foi posicionado e liberado oclisor vascular Figulla flex II 21mm (Occlutech) com dois discos concêntricos, obtendo sucesso na oclusão do trajeto fistuloso entre a aorta e a veia cava inferior (Figura 4). O tamanho do oclisor se baseou no tamanho do orifício fistuloso, mensurado nas angiotomografia e angiografia iniciais, sendo sobredimensionado para garantir uma boa aposição à parede degenerada da aorta, evitando migração.

Realizou-se então o tratamento do aneurisma de aorta abdominal infrarrenal, com corpo principal de endoprótese Endurant (Medtronic) 36×20×166 mm pelo acesso arterial esquerdo, com extensões 16×16×124 mm e 16×24×82 mm contralateral e 16×20×93 mm ipsilateral. Angiografia final evidenciou sucesso no tratamento do aneurisma, perviedade de artérias renais e ausência de vazamentos, mesmo após injeção concomitante pelos acessos arterial e venoso (Figura 5).

O paciente apresentou recuperação adequada no pós-operatório, recebendo alta no quinto dia, em boas condições clínicas e com edema de membros inferiores em regressão. Angiotomografia de controle aos 30 dias evidenciou endoprótese pervia, sem

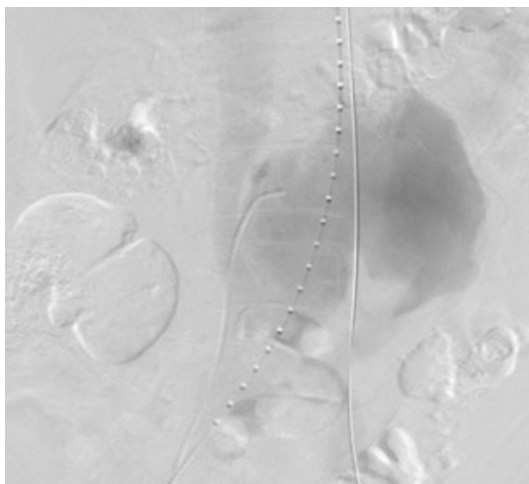


Figura 3. Trajeto fistuloso cateterizado com cateter JR 5F pelo acesso venoso direito.

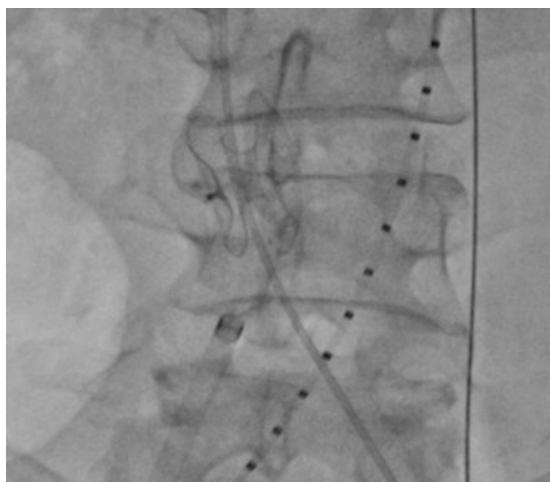


Figura 4. Oclisor Figulla II em posição após liberação.

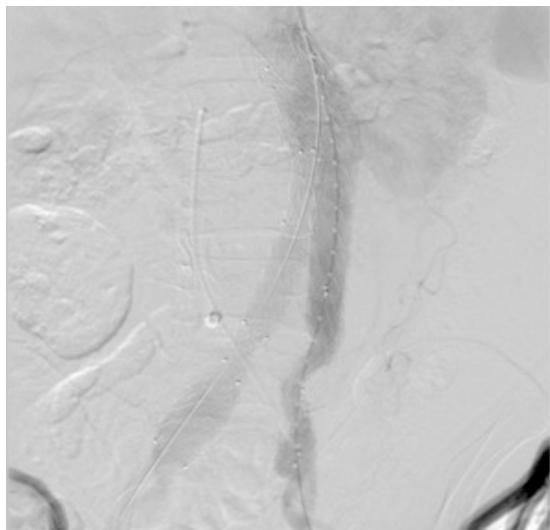


Figura 5. Angiografia final sem evidência de vazamentos.



Figura 6. Angiotomografia com reconstrução 3D do acompanhamento de 30 dias.

sinais de vazamentos. Observou-se também veia cava inferior pérvia e ocluidor bem posicionado, sem evidência de trombose secundária (Figura 6). Já se passa 1 ano do tratamento e infelizmente o paciente se nega a realizar qualquer retorno ambulatorial ou a realizar exames de imagem. Em contato telefônico, informa permanecer sem novas queixas ou sintomas relacionados.

DISCUSSÃO

A fistula aorto-cava é uma rara complicação dos aneurismas de aorta abdominal infrarrenal, podendo chegar a 4% dos casos de aneurisma roto¹. O primeiro caso relatado foi publicado por Syme em 1831, sendo que, em 1955, Cooley relatou seu tratamento cirúrgico com sucesso².

Acredita-se que o aumento da tensão da parede dos aneurismas resulte em reação inflamatória e aderência à veia adjacente – geralmente a veia cava inferior – culminando na erosão das paredes e formação da fistula³. Sua apresentação clássica consiste em massa abdominal pulsátil associada a frêmito e “sopro em maquinaria”, insuficiência cardíaca direita e sinais de hipertensão venosa. Raramente pode ocorrer embolia pulmonar paradoxal (EPP), ocasionada pela passagem de trombos do aneurisma para a circulação venosa⁴. Outros sinais e sintomas incluem estase jugular, dispneia, derrame pleural, hepatomegalia, ascite, hematúria⁵.

Devido à sua gravidade, as fistulas aorto-cava devem ser abordadas tão logo seja feito o diagnóstico. Com o tratamento cirúrgico convencional, a mortalidade

perioperatória gira em torno de 16 a 66%⁶. Isso se deve ao fato de se tratar de pacientes normalmente em idade avançada, com múltiplas comorbidades, complicadas pelas alterações hemodinâmicas sistêmicas que uma fistula de alto débito provoca⁷. Avaliação pré-anestésica minuciosa da função cardiopulmonar, bem como administração criteriosa de fluidos e controle pressórico são essenciais para aumentar as chances de sucesso e diminuir as complicações, principalmente no momento do fechamento da fistula, quando pode ocorrer descompensação cardíaca aguda⁸.

As técnicas endovasculares são atrativas frente ao tratamento cirúrgico convencional. Revisão de literatura publicada por Antoniou et al. em 2009 mostra sucesso técnico de 96% no tratamento por via endovascular, sem relato de mortalidade perioperatória em 30 dias⁹. Porém, existem algumas preocupações teóricas relacionadas ao tratamento endovascular. Primeiramente, a manipulação da luz do aneurisma poderia provocar o deslocamento de trombos e uma EPP. Além disso, o tratamento do aneurisma sem a oclusão da fistula poderia predispor ao vazamento, pela persistência do canal fistuloso¹⁰.

A EPP é um evento raro porém com alta morbimortalidade¹¹. Por ser de diagnóstico difícil e se confundir com os sintomas de insuficiência cardíaca do paciente, pode ser subestimada¹². Alguns relatos descreveram a utilização de filtro de veia cava temporário para evitar a embolia paradoxal durante a manipulação da luz do aneurisma para o posicionamento da endoprótese^{13,14}. Essa prática, entretanto, não se repetiu com frequência na literatura. Outros relatos apenas fizeram o tratamento convencional do aneurisma com endoprótese, sem a utilização de filtros, obtendo sucesso no fechamento da fistula aorto-cava sem relato de embolia paradoxal¹⁵⁻¹⁷. Devido ao tamanho do aneurisma rechaçando a parede da veia cava (o que poderia dificultar o implante de filtro temporário e sua retirada) e dada a disponibilidade do ocluidor, optamos por não utilizar o filtro. Assim, ao ocluir o trajeto fistuloso previamente à introdução da endoprótese, manipulamos minimamente a luz aneurismática, evitando o deslocamento de trombos e consequentemente a EPP.

O vazamento tipo II – aquele proveniente de fluxo retrógrado de ramos do aneurisma, tipicamente de artéria lombar ou mesentérica inferior – é a complicação mais encontrada no tratamento endovascular das fistulas aorto-cava, presente em até 22% dos casos⁹. Entretanto, relatos da literatura mostram se tratar de evento normalmente autolimitado¹⁸. Esse tipo de vazamento parece estar sujeito a uma dinâmica diferente, na qual a baixa pressão do território venoso

favorece uma via de saída para o fluxo retrógrado dos ramos aórticos, diminuindo a tensão na parede aórtica e favorecendo sua resolução espontânea¹⁹. Entretanto, alguns autores sugerem que, mesmo após liberação da endoprótese, pode haver fluxo exacerbado de sangue para dentro do saco aneurismático através da fistula, o que levaria a um segundo procedimento para sua correção. Pensando nisso, ElKassaby et al. e Silveira et al. propuseram o tratamento concomitante do aneurisma e da fistula aorto-cava, com a utilização de endoprótese do lado arterial e venoso, o que se mostrou factível, podendo ser mais efetivo que o tratamento endovascular aórtico exclusivo^{20,21}. Levando em conta o tamanho do aneurisma e da fistula, o risco de endoleak nos pareceu muito alto e optamos pelo tratamento de ambos em um só tempo. Caso a fistula não fosse ocluída e surgisse um vazamento durante o acompanhamento, seu tratamento iria requerer outra estratégia, provavelmente com gasto de mais material de alto custo, além do risco de uma nova abordagem invasiva para o paciente. Havendo o material disponível para tratamento em um só tempo cirúrgico, julgamos mais seguro fazê-lo.

Apesar de seu uso *off-label* neste caso, o oclisor se adaptou bem às paredes arterial e venosa, cumprindo seu papel sem apresentar grandes dificuldades técnicas em seu posicionamento e liberação, uma vez que se tenha cateterizado o trajeto fistuloso. Oclusores vasculares já vêm sendo utilizados em pacientes submetidos a implante percutâneo de válvula aórtica que tenham o eixo iliofemoral afilado, nos quais a confecção de um trajeto fistuloso entre a veia cava e a aorta é opção para a ascensão de dispositivos de grande diâmetro^{22,23}. Godart et al.²⁴ e LaBarbera et al.²⁵ utilizaram um oclisor Amplatzer para tratamento da fistula aorto-cava. Entretanto, em seus relatos os autores utilizaram o dispositivo oclisor como procedimento de resgate em pacientes previamente tratados com endoprótese ou cirurgia convencional para correção do aneurisma abdominal e que apresentaram fluxo persistente pelo orifício fistuloso no acompanhamento.

O uso de oclisor vascular associado a endoprótese bifurcada para tratamento de caso de aneurisma de aorta abdominal infrarenal com fistula aorto-cava teve sucesso com resultado satisfatório imediato. Outros estudos são necessários para avaliar o uso rotineiro de oclusores vasculares no tratamento de fistulas aorto-cava e seu seguimento em longo prazo. Com a evolução dos materiais endovasculares, novos oclusores ou endopróteses para uso venoso exclusivo podem se tornar a primeira escolha no tratamento de fistulas aorto-cava.

REFERÊNCIAS

- Oliveira LA, Leão PP, Barbatto HA, Malheiros FD. Aneurisma de aorta abdominal com fistula espontânea aorto-cava. *Cir Vasc Ang.* 1992;8:15-8.
- Timi J, Góes DJr, Oliveira A. Aneurisma de aorta abdominal roto para veia cava inferior: relato de caso e revisão de literatura. *Cir Vasc Ang.* 1992;8(3):21-3.
- Woolley DS, Spence RK. Aortocaval fistula treated by aortic exclusion. *J Vasc Surg.* 1995;22(5):639-42. PMID:7494369. [http://dx.doi.org/10.1016/S0741-5214\(95\)70053-6](http://dx.doi.org/10.1016/S0741-5214(95)70053-6).
- Tsolakis JA, Papadoulas S, Kakkos SK, Skroubis G, Siablis D, Androulakis JA. Aortocaval Fistula in ruptured aneurysms. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 1999;17(5):390-3. PMID:10329521. <http://dx.doi.org/10.1053/ejvs.1998.0777>.
- Rajmohan B. Spontaneous Aortocaval fistula. *J Postgrad Med.* 2002;48(3):203-5. PMID:12432197.
- Lopes JA, Mansilha A, Teixeira JF. Fistula aorto-cava: caso clínico. *Angiologia e Cirurgia Vascul.* 2014;10(1):25-9. [http://dx.doi.org/10.1016/S1646-706X\(14\)70029-1](http://dx.doi.org/10.1016/S1646-706X(14)70029-1).
- Cinara IS, Davidovic LB, Kostic DM, Cvetkovic SD, Jakovljevic NS, Koncar IB. Aorto-caval fistulas: a review of eighteen years experience. *Acta Chir Belg.* 2005;105(6):616-20. PMID:16438071. <http://dx.doi.org/10.1080/00015458.2005.11679788>.
- Jakanani GC, Chong PL. Pre-operative diagnosis of an unusual complication of abdominal aortic aneurysm on multidetector computed tomography: a case report. *Cases J.* 2008;1(1):231. PMID:18845001. <http://dx.doi.org/10.1186/1757-1626-1-231>.
- Antoniou GA, Koutsias S, Karathanos C, Sfyroeras GS, Vretzakis G, Giannoukas AD. Endovascular stent-graft repair of major abdominal arteriovenous fistula: a systematic review. *J Endovasc Ther.* 2009;16(4):514-23. PMID:19702345. <http://dx.doi.org/10.1583/09-2725.1>.
- Vettrhus M, McWilliams R, Tan CK, Brennan J, Gilling-Smith G, Harris PL. Endovascular repair of Abdominal Aortic aneurysms with Aortocaval fistula. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 2005;30(6):640-3. PMID:16168683. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ejvs.2005.07.017>.
- Bridger JE. Aortocaval fistula: a rare cause of paradoxical pulmonary embolism. *Postgrad Med J.* 1994;70(820):122-3. PMID:8170884. <http://dx.doi.org/10.1136/pgmj.70.820.122>.
- Rango P, Parlani G, Cieri E, et al. Paradoxical pulmonary embolism with spontaneous Aortocaval Fistula. *Ann Vasc Surg.* 2012;26(5):739-46. PMID:22197523. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2011.06.011>.
- Guzzardi G, Fossaceca R, Divenuto I, Musiani A, Brustia P, Carriero A. Endovascular treatment of Ruptured Abdominal Aortic Aneurysm with Aortocaval Fistula. *Cardiovasc Intervent Radiol.* 2010;33(4):853-6. PMID:19572169. <http://dx.doi.org/10.1007/s00270-009-9640-5>.
- Janczak D, Chabowski M, Szydelko T, Garczarek J. Endovascular exclusion of a large spontaneous aortocaval fistula in a patient with a ruptured aortic aneurysm. *Vascular.* 2014;22(3):202-5. PMID:23512906. <http://dx.doi.org/10.1177/1708538113478749>.
- Sebastian AJ, Choksy SA. Endovascular treatment of Aorto-caval fistula. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 2011;22(6):e65-6.
- Na SJ, Koh Y-S, Kim T-H, et al. Iliocaval fistula presenting with paradoxical pulmonary embolism combined with high-output heart failure successfully treated by endovascular stent-graft repair: case report. *J Korean Med Sci.* 2014;29(2):296-300. PMID:24550662. <http://dx.doi.org/10.3346/jkms.2014.29.2.296>.

17. Takkar C, Choi L, Mastouri N, Kadambi PV. Aortocaval fistula: a rare cause of venous hypertension and acute renal failure. *Case Rep Surg.* 2012;2012(4):487079-3. PMID:23346449.
18. Brightwell RE, Pegna V, Boyne N. Aortocaval fistula: current management strategies. *ANZ J Surg.* 2013;83(1-2):31-5. PMID:23072669. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1445-2197.2012.06294.x>.
19. van de Luijtgaarden KM, Bastos Goncalves F, Rouwet EV, Hendriks JM, Ten Raa S, Verhagen HJ. Verhagen HJ. Conservative management of persistent aortocaval fistula after endovascular aortic repair. *J Vasc Surg.* 2013;58(4):1080-3. PMID:23478500. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2012.10.138>.
20. ElKassaby M, Alawy M, Zaki M, Hynes N, Tawfick W, Sultan S. Total endovascular management of ruptured aortocaval fistula: technical challenges and case report. *Vascular.* 2014;22(4):306-9. PMID:24000081. <http://dx.doi.org/10.1177/1708538113499018>.
21. Silveira PG, Cunha JRF, Lima GBB, Franklin RN, Bortoluzzi CT, Galego GDN. Endovascular treatment of ruptured abdominal aortic aneurysm with aortocaval fistula based on aortic and inferior vena cava stent-graft placement. *Ann Vasc Surg.* 2014;28(8):1933-1-1933-5.
22. Greenbaum AB, O'Neill WW, Paone G, et al. Caval-aortic access to allow transcatheter aortic valve replacement in otherwise ineligible patients: initial human experience. *J Am Coll Cardiol.* 2014;63(25):2795-804. PMID:24814495. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jacc.2014.04.015>.
23. Lederman RJ, Babalarios VC, Greenbaum AB. How to perform transcaval access and closure for transcatheter aortic valve implantation. *Catheter Cardiovasc Interv.* 2015;86(7):1242-54. PMID:26356244. <http://dx.doi.org/10.1002/ccd.26141>.
24. Godart F, Haulon S, Houmany M, et al. Transcatheter closure of aortocaval fistula with the amplatzer duct occluder. *J Endovasc Ther.* 2005;12(1):134-7. PMID:15683265. <http://dx.doi.org/10.1583/04-1332.1>.
25. LaBarbera M, Nathanson D, Hui P. Percutaneous closure of aortocaval fistula using the amplatzer muscular VSD occluder. *J Invasive Cardiol.* 2011;23(8):343-4. PMID:21828399.

Correspondência

Bruno Lorenção de Almeida
Avenida Dr. Dante Pazzanese, 500
CEP 04012-909 - São Paulo (SP), Brasil
Tel.: (11) 5085-6048
E-mail: brunolorencao@gmail.com

Informações sobre os autores

BLA - Cirurgião Vascular com área de atuação em Cirurgia Endovascular e Ecografia Vascular com Doppler; Médico do Centro de Intervenções Endovasculares do Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC); Aluno do programa de Pós-graduação nível Doutorado da Universidade de São Paulo (USP-IDPC).
FHR - Cirurgião Vascular com área de atuação em Cirurgia Endovascular; Médico do Centro de Intervenções Endovasculares do Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC); Doutor em Medicina pela Universidade de São Paulo (USP).
TOR - Cirurgião Vascular com área de atuação em Cirurgia Endovascular; Médico do Centro de Intervenções Endovasculares do Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC).
LBA - Cirurgião Vascular; Médico Estagiário do Centro de Intervenções Endovasculares do Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC).
SFAC - Cirurgiã Vascular; Médica Estagiária do Departamento de Ecocardiografia e Eco-Doppler Vascular do Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC).
CBB - Cirurgiã Vascular; Médica Assistente do Departamento de Ecocardiografia e Eco-Doppler Vascular do Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC).
CACP - Cardiologista Intervencionista Pediátrico; Chefe da Seção Médica de Cardiopatias Congênitas do Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC); Doutor em Medicina pela Universidade de São Paulo (USP).
AMK - Radiologista; Chefe da Seção Médica de Radiologia do Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC); Médico do Centro de Intervenções Endovasculares do IDPC; Doutor em Medicina pela Universidade Federal de São Paulo (UNIFESP).

Contribuições dos autores

Concepção e desenho do estudo: BLA
Análise e interpretação dos dados: BLA, FHR, AMK, CACP
Coleta de dados: LBA, TOR
Redação do artigo: BLA, SFAC, CBB
Revisão crítica do texto: BLA, AMK
Aprovação final do artigo*: BLA, FHR, AMK, CACP, TOR, LBA, SFAC, CBB
Análise estatística: BLA
Responsabilidade geral pelo estudo: BLA

*Todos os autores leram e aprovaram a versão final submetida ao *J Vasc Bras.*

Endovascular treatment of an abdominal aortic aneurysm with aortocaval fistula using a vascular occluder and a bifurcated endograft in a single intervention: case report

Tratamento endovascular de aneurisma de aorta abdominal com fistula aorto-cava utilizando oclisor vascular concomitante a endoprótese bifurcada: relato de caso

Bruno Lorenção de Almeida¹, Fabio Henrique Rossi¹, Thiago Osawa Rodrigues¹, Leandro Berutto Ahouagi¹, Sthefanie Fauve Andrade Cavalcante¹, Camila Bauman Beteli¹, Carlos Augusto Cardoso Pedra¹, Antônio Massamitsu Kambara¹

Abstract

Aortocaval fistulae are rare entities with a variety of etiologies and are very often associated with significant morbidity and mortality. It is believed that increased tension in the walls of large aneurysms can cause an inflammatory reaction resulting in adhesion to the adjacent vein and culminating in erosion of the adherent layers and fistula formation. Conventional surgical treatment has high mortality rates. Paradoxical pulmonary embolism and endoleaks are the most concerning complications linked with endovascular treatment. Using a vascular occluder in combination with a bifurcated endograft is a good option for the treatment of an abdominal aortic aneurysm with aortocaval fistula.

Keywords: aneurysm aortic, aortocaval fistula, endovascular procedures.

Resumo

As fistulas aorto-cava são entidades raras e de etiologia variada, estando frequentemente associadas a significativa morbimortalidade. Acredita-se que o aumento da tensão da parede nos grandes aneurismas resulte em reação inflamatória e aderência à veia adjacente, culminando na erosão das camadas aderidas e na formação da fistula. O tratamento cirúrgico convencional tem altas taxas de mortalidade. Embolia pulmonar paradoxal e o vazamento são complicações temidas do tratamento endovascular. O uso de oclisor vascular associado a endoprótese bifurcada é boa opção no tratamento do aneurisma de aorta abdominal com fistula aorto-cava.

Palavras-chave: aneurisma aórtico; fistula aorto-cava; procedimentos endovasculares.

¹Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia – IDPC, São Paulo, SP, Brazil.

Financial support: None.

Conflicts of interest: No conflicts of interest declared concerning the publication of this article.

Submitted: November 23, 2016. Accepted: April 03, 2017.

The study was carried out at Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC), São Paulo, SP, Brazil.

■ INTRODUCTION

Aortocaval fistulae are rare entities with a variety of etiologies and are associated with significant morbidity and mortality. The great majority are the result of erosion or rupture of an abdominal aorta aneurysm into the inferior vena cava. The objective of this article is to describe a case of aortocaval fistula in a patient with an abdominal aortic aneurysm that was managed with endovascular treatment using a vascular occluder combined with placement of a bifurcated endograft.

■ CASE DESCRIPTION

A 71-year-old male patient who was a smoker with a history of drinking and a preexisting infrarenal abdominal aortic aneurysm diagnosed 15 years previously, but not monitored regularly, was referred to the Endovascular Surgery Service at our institution for evaluation and possibly for treatment. He complained of an abdominal pulsating mass, associated with diffuse abdominal pains that were intermittent and had had onset a long time previously. He also reported edema of the lower limbs over the previous 8 months, asthenia, and weight loss of 20 kg over the preceding 6 months. Examination revealed a pulsating mass in the mesogastrium, with abdomen diffusely painful on palpation and a perceptible thrill in the left flank.

Abdominal color Doppler ultrasonography indicated an abdominal aortic aneurysm with a diameter of 9.7 cm, with mural thrombus and mobile thrombi

in the lumen (Figure 1). High velocity flow was observed at the right posterolateral wall, suggestive of an arteriovenous fistula with a diameter of 5 mm, communicating between the aneurysm and the inferior vena cava. Angiotomography of the aorta showed aneurysmal dilatation, fusiform at the infrarenal abdominal aorta, extending to the bifurcation of the common iliac arteries and measuring 9.2 cm, in addition to communication between the abdominal aorta and the inferior vena cava at the right posterolateral wall, measuring around 8 mm in diameter and located 2 cm above the iliac bifurcation (Figure 2). The right cardiac chambers were also enlarged and there was pleural effusion with atelectasis of the lower pulmonary lobes, bilaterally. Despite the presence of cardiac chamber dilatation seen on tomography, the echocardiogram showed discrete atrial enlargement and preserved cardiac function.

We decided, with the patient's consent, to undertake endovascular treatment with a bifurcated endograft and vascular occluder, in view of the lower morbidity and mortality and the favorable anatomic and clinical conditions for the procedure. The first step was bilateral dissection of the common femoral arteries and placement of 6Fr valved introducers bilaterally, under general anesthesia and with cardiopulmonary monitoring. The common femoral veins were punctured and 5Fr valved introducers were placed bilaterally. A graduated Pigtail catheter was introduced into the abdominal aorta via the right arterial access and a 300cm 035 Lunderquist guide wire was introduced



Figure 1. Abdominal aneurysm with image showing mural thrombi on B mode ultrasound.

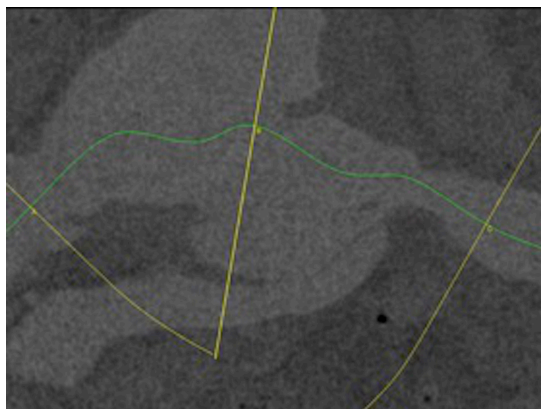


Figure 2. Abdominal aortic aneurysm with aortocaval fistula shown by angiotomography.

via the left arterial access, to straighten the aortic anatomy.

Initial phlebography revealed strong collateral circulation, originating from the internal iliac veins, extrinsic compression of the distal segment of the inferior vena cava – by the adjacent aneurysm – and images compatible with an arteriovenous fistula in this topography (Figure 3). The fistula path was catheterized via the right venous access with a 5Fr JR diagnostic catheter and 0.035 hydrophilic guide wire, which was later substituted for a 260 cm extra stiff 0.035 Amplatz guide wire. A 45cm 12Fr Flexor Check-Flo sheath (Cook) was positioned through the fistula orifice, via the right venous access. At this point a 21mm Figulla flex II vascular occluder (Occlutech) with two concentric discs was deployed, which successfully occluded the fistular communication between the aorta and the inferior vena cava (Figure 4). The occluder size was chosen on the basis of the size of the fistula orifice, which had been measured on initial angiotomography and angiography, and was oversized in order to guarantee good apposition against the degenerated aorta wall, to prevent migration.

The infrarenal abdominal aortic aneurysm was then repaired using a 36×20×166 mm Endurant endograft main body (Medtronic), deployed via the left arterial access, 16×16×124 mm and 16×24×82 mm contralateral extensions, and a 16×20×93 mm ipsilateral extension. Final angiography showed that the aneurysm had been successfully repaired, the renal arteries were patent and there were no leaks, even when simultaneous injections via the arterial and venous accesses were applied (Figure 5).

The patient recovered well during the postoperative period and was discharged on the fifth day, in good

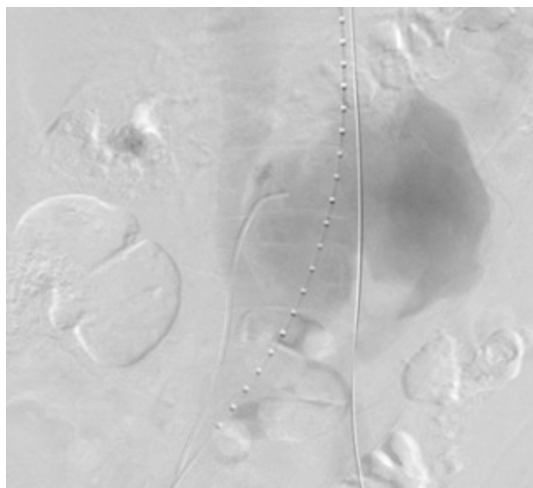


Figure 3. Fistular path catheterized with 5Fr JR catheter via right venous access.

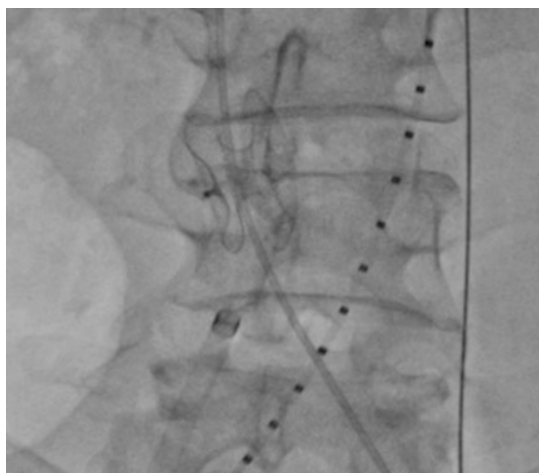


Figure 4. Figulla II occluder in place after release.

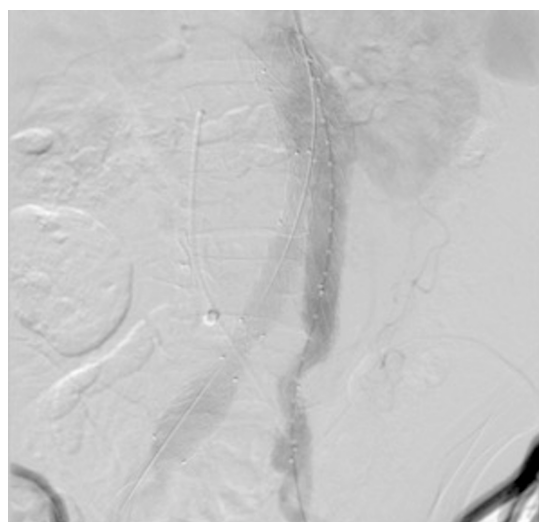


Figure 5. Final angiography with no evidence of leakage.



Figure 6. Angiotomography with 3D reconstruction at 30-day follow-up.

clinical condition and with the lower limb edema in regression. A control angiotomography at 30 days showed the endograft patent and no signs of leakage. It was also possible to observe that the inferior vena cava was patent and the occluder was correctly positioned and with no evidence of secondary thrombosis (Figure 6). It has been 1 year since treatment and unfortunately the patient refuses to attend any type of clinical follow-up or submit to imaging exams. Via telephone he states that he has no new complaints or related symptoms.

DISCUSSION

Aorticaval fistula is a rare complication of infrarenal abdominal aortic aneurysms, which can occur in up to 4% of ruptured aneurysm cases.¹ The first case report was published by Syme in 1831 and Cooley described successful surgical treatment in 1955.²

It is believed that increased tension against the aneurysm wall causes an inflammatory reaction and adhesion to the adjacent vein – generally the inferior vena cava – resulting in erosion of the walls and formation of the fistula.³ The classic presentation consists of an abdominal pulsating mass associated with thrill and “machinery murmur”, right heart failure and signs of venous hypertension. On rare occasions paradoxical pulmonary embolism (PPE) may be caused by thrombi from the aneurysm entering venous circulation.⁴ Other signs and symptoms include jugular stasis, dyspnea, pleural effusion, hepatomegaly, ascites, and hematuria.⁵

In view of their severity, aorticaval fistulae should be treated as soon as they are diagnosed. Conventional surgical treatment is associated with perioperative mortality ranging from 16 to 66%.⁶ This is because these are usually patients of advanced age with multiple comorbidities and cases are complicated by the systemic hemodynamic changes caused by a high throughput fistula.⁷ Detailed pre-anesthetic assessment of cardiopulmonary function and carefully controlled administration of fluids and control of blood pressure are essential to increase the likelihood of success and reduce complications, particularly when the fistula is occluded, when acute cardiac decompensation may occur.⁸

Endovascular techniques are attractive alternatives to conventional surgical treatment. A review of the literature published by Antoniou et al. in 2009 reported a 96% technical success rate for endovascular treatment, with no reports of perioperative mortality within 30 days.⁹ However, there are certain theoretical concerns related to endovascular treatment. First, manipulation of the aneurysm lumen could provoke displacement of thrombi and result in a PPE. Additionally, treatment of the aneurysm without occlusion of the fistula could predispose to leakage, because of persistence of the fistula canal.¹⁰

A PPE is a rare event, but one that is associated with high morbidity and mortality.¹¹ Since it is difficult to diagnose and can be confused with the patient’s symptoms of heart failure, it may be underestimated.¹² Some reports describe temporary placement of a vena cava filter to prevent paradoxical embolism during manipulation of the lumen of the aneurysm to deploy the endograft.^{13,14} However, this practice is uncommon in the literature. Other reports only describe conventional treatment of the aneurysm with an endograft, without use of filters, achieving successful occlusion of the aorticaval fistula without reporting paradoxical embolism.¹⁵⁻¹⁷ In view of the size of the aneurysm exerting pressure on the wall of the vena cava (which could make placement and removal of the temporary filter difficult) and since the occluder was available, we decided not to employ a filter. When occluding the fistula canal prior to introduction of the endograft, we therefore manipulated the lumen of the aneurysm as little as possible to avoid displacement of thrombi, and consequently PPE.

A type II endoleak – which is fed by retrograde flow from branches of the aneurysm, typically a lumbar artery or inferior mesenteric artery – is the most frequently observed complication of endovascular treatment of aorticaval fistulae, seen in up to 22% of cases.⁹ However, reports in the literature show that this event

is normally self-limiting.¹⁸ This type of leakage appears to be subject to different dynamics, by which the low pressure of the venous system provides an exit route for retrograde flow from the aortic branches, reduces tension at the aorta wall and facilitates spontaneous resolution.¹⁹ However, some authors suggest that, even after release of the endograft, blood flow into the aneurysm sac may be exacerbated through the fistula, which would require a second procedure to repair. To address this, ElKassaby et al. and Silveira et al. proposed concurrent treatment of the aneurysm and the aortocaval fistula, using an endograft from the arterial and venous sides, which proved feasible and may be more effective than endovascular treatment of the aorta alone.^{20,21} In view of the size of the aneurysm and the fistula, we considered that there was a high risk of endoleak and so we decided to treat both during the same operation. If the fistula had not been occluded and a leak had occurred during follow-up, a different strategy would have been needed to treat it, probably involving use of further high-value materials and the risk to the patient that an additional invasive procedure would involve. Since the materials needed for treatment in a single operation were available, we judged this to be the safest option.

Although this application was off-label, the occluder was a good fit to the arterial and venous walls, fulfilling its role without causing major technical difficulties during placement and release, since the fistular path had been catheterized in advance. Vascular occluders have been used previously in patients with a narrow iliofemoral axis given percutaneous aortic valve implants, in whom creation of a fistular path between the vena cava and the aorta is an access option for larger diameter devices.^{22,23} Godart et al.²⁴ and LaBarbera et al.²⁵ have used Amplatzer occluders to treat aortocaval fistulae. However, in their reports these authors employed the occluder device as a remedial procedure in patients who had previously been treated with endografts or conventional surgery to repair abdominal aneurysms, but had exhibited persistent flow through the fistular orifice in follow-up.

Use of the vascular occluder in combination with a bifurcated endograft to treat this case of infrarenal abdominal aortic aneurysm with an aortocaval fistula was successful and immediate results were satisfactory. Further studies are needed to assess routine use of vascular occluders for treatment of aortocaval fistulae, including long-term follow-up. As endovascular materials continue to evolve, new occluders or endoprostheses exclusively for venous applications may become the first choice for treatment of aortocaval fistulae.

REFERENCES

- Oliveira LA, Leão PP, Barbatto HA, Malheiros FD. Aneurisma de aorta abdominal com fistula espontânea aorto-cava. *Cir Vasc Ang.* 1992;8:15-8.
- Timi J, Góes DJr, Oliveira A. Aneurisma de aorta abdominal roto para veia cava inferior: relato de caso e revisão de literatura. *Cir Vasc Ang.* 1992;8(3):21-3.
- Woolley DS, Spence RK. Aortocaval fistula treated by aortic exclusion. *J Vasc Surg.* 1995;22(5):639-42. PMID:7494369. [http://dx.doi.org/10.1016/S0741-5214\(95\)70053-6](http://dx.doi.org/10.1016/S0741-5214(95)70053-6).
- Tsolakis JA, Papadoulas S, Kakkos SK, Skroubis G, Siablis D, Androulakis JA. Aortocaval Fistula in ruptured aneurysms. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 1999;17(5):390-3. PMID:10329521. <http://dx.doi.org/10.1053/ejvs.1998.0777>.
- Rajmohan B. Spontaneous Aortocaval fistula. *J Postgrad Med.* 2002;48(3):203-5. PMID:12432197.
- Lopes JA, Mansilha A, Teixeira JF. Fistula aorto-cava: caso clínico. *Angiologia e Cirurgia Vascul.* 2014;10(1):25-9. [http://dx.doi.org/10.1016/S1646-706X\(14\)70029-1](http://dx.doi.org/10.1016/S1646-706X(14)70029-1).
- Cinara IS, Davidovic LB, Kostic DM, Cvetkovic SD, Jakovljevic NS, Koncar IB. Aorto-caval fistulas: a review of eighteen years experience. *Acta Chir Belg.* 2005;105(6):616-20. PMID:16438071. <http://dx.doi.org/10.1080/00015458.2005.11679788>.
- Jakanani GC, Chong PL. Pre-operative diagnosis of an unusual complication of abdominal aortic aneurysm on multidetector computed tomography: a case report. *Cases J.* 2008;1(1):231. PMID:18845001. <http://dx.doi.org/10.1186/1757-1626-1-231>.
- Antoniou GA, Koutsias S, Karathanos C, Sfyroeras GS, Vretzakis G, Giannoukas AD. Endovascular stent-graft repair of major abdominal arteriovenous fistula: a systematic review. *J Endovasc Ther.* 2009;16(4):514-23. PMID:19702345. <http://dx.doi.org/10.1583/09-2725.1>.
- Vettrhus M, McWilliams R, Tan CK, Brennan J, Gilling-Smith G, Harris PL. Endovascular repair of Abdominal Aortic aneurysms with Aortocaval fistula. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 2005;30(6):640-3. PMID:16168683. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ejvs.2005.07.017>.
- Bridger JE. Aortocaval fistula: a rare cause of paradoxical pulmonary embolism. *Postgrad Med J.* 1994;70(820):122-3. PMID:8170884. <http://dx.doi.org/10.1136/pgmj.70.820.122>.
- Rango P, Parlani G, Cieri E, et al. Paradoxical pulmonary embolism with spontaneous Aortocaval Fistula. *Ann Vasc Surg.* 2012;26(5):739-46. PMID:22197523. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2011.06.011>.
- Guzzardi G, Fossaceca R, Divenuto I, Musiani A, Brustia P, Carriero A. Endovascular treatment of Ruptured Abdominal Aortic Aneurysm with Aortocaval Fistula. *Cardiovasc Intervent Radiol.* 2010;33(4):853-6. PMID:19572169. <http://dx.doi.org/10.1007/s00270-009-9640-5>.
- Janczak D, Chabowski M, Szydelko T, Garczarek J. Endovascular exclusion of a large spontaneous aortocaval fistula in a patient with a ruptured aortic aneurysm. *Vascular.* 2014;22(3):202-5. PMID:23512906. <http://dx.doi.org/10.1177/1708538113478749>.
- Sebastian AJ, Choksy SA. Endovascular treatment of Aorto-caval fistula. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 2011;22(6):e65-6.
- Na SJ, Koh Y-S, Kim T-H, et al. Iliocaval fistula presenting with paradoxical pulmonary embolism combined with high-output heart failure successfully treated by endovascular stent-graft repair: case report. *J Korean Med Sci.* 2014;29(2):296-300. PMID:24550662. <http://dx.doi.org/10.3346/jkms.2014.29.2.296>.

17. Takkar C, Choi L, Mastouri N, Kadambi PV. Aortocaval fistula: a rare cause of venous hypertension and acute renal failure. *Case Rep Surg*. 2012;2012(4):487079-3. PMID:23346449.
18. Brightwell RE, Pegna V, Boyne N. Aortocaval fistula: current management strategies. *ANZ J Surg*. 2013;83(1-2):31-5. PMID:23072669. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1445-2197.2012.06294.x>.
19. van de Luijtgaarden KM, Bastos Goncalves F, Rouwet EV, Hendriks JM, Ten Raa S, Verhagen HJ. Verhagen HJ. Conservative management of persistent aortocaval fistula after endovascular aortic repair. *J Vasc Surg*. 2013;58(4):1080-3. PMID:23478500. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2012.10.138>.
20. ElKassaby M, Alawy M, Zaki M, Hynes N, Tawfick W, Sultan S. Total endovascular management of ruptured aortocaval fistula: technical challenges and case report. *Vascular*. 2014;22(4):306-9. PMID:24000081. <http://dx.doi.org/10.1177/1708538113499018>.
21. Silveira PG, Cunha JRF, Lima GBB, Franklin RN, Bortoluzzi CT, Galego GDN. Endovascular treatment of ruptured abdominal aortic aneurysm with aortocaval fistula based on aortic and inferior vena cava stent-graft placement. *Ann Vasc Surg*. 2014;28(8):1933-1-1933-5.
22. Greenbaum AB, O'Neill WW, Paone G, et al. Caval-aortic access to allow transcatheter aortic valve replacement in otherwise ineligible patients: initial human experience. *J Am Coll Cardiol*. 2014;63(25):2795-804. PMID:24814495. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jacc.2014.04.015>.
23. Lederman RJ, Babaliarios VC, Greenbaum AB. How to perform transcaval access and closure for transcatheter aortic valve implantation. *Catheter Cardiovasc Interv*. 2015;86(7):1242-54. PMID:26356244. <http://dx.doi.org/10.1002/ccd.26141>.
24. Godart F, Haulon S, Houmany M, et al. Transcatheter closure of aortocaval fistula with the amplatzer duct occluder. *J Endovasc Ther*. 2005;12(1):134-7. PMID:15683265. <http://dx.doi.org/10.1583/04-1332.1>.
25. LaBarbera M, Nathanson D, Hui P. Percutaneous closure of aortocaval fistula using the amplatzer muscular VSD occluder. *J Invasive Cardiol*. 2011;23(8):343-4. PMID:21828399.

Correspondence

Bruno Lorenção de Almeida
Avenida Dr. Dante Pazzanese, 500
CEP 04012-909 - São Paulo (SP), Brazil
Tel: +55 (11) 5085-6048
E-mail: brunolorencao@gmail.com

Author information

BLA - Vascular Surgeon with expertise in Endovascular Surgery and Doppler Ultrasound; Physician at Centro de Intervenções Endovasculares, Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC); PhD candidate, Universidade de São Paulo (USP-IDPC).
FHR - Vascular Surgeon with expertise in Endovascular Surgery; Physician at Centro de Intervenções Endovasculares, Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC); PhD in Medicine from Universidade de São Paulo (USP).
TOR - Vascular Surgeon with expertise in Endovascular Surgery; Physician at Centro de Intervenções Endovasculares, Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC).
LBA - Vascular Surgeon; Training Physician at Centro de Intervenções Endovasculares, Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC).
SFAC - Vascular Surgeon; Training Physician at Departamento de Ecocardiografia e Eco-Doppler Vascular, Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC).
CBB - Vascular Surgeon; Assistant Physician at Departamento de Ecocardiografia e Eco-Doppler Vascular, Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC).
CACP - Pediatric Interventional Cardiologist; Chief of the Congenital Cardiopathy Medical Section, Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC); PhD in Medicine from Universidade de São Paulo (USP).
AMK - Radiologist; Chief, Radiology Medical Section, Instituto Dante Pazzanese de Cardiologia (IDPC); Physician at Centro de Intervenções Endovasculares, IDPC; PhD in Medicine from Universidade Federal de São Paulo (UNIFESP).

Author contributions

Conception and design: BLA
Analysis and interpretation: BLA, FHR, AMK, CACP
Data collection: LBA, TOR
Writing the article: BLA, SFAC, CBB
Critical revision of the article: BLA, AMK
Final approval of the article*: BLA, FHR, AMK, CACP, TOR, LBA, SFAC, CBB
Statistical analysis: BLA
Overall responsibility: BLA

*All authors have read and approved of the final version of the article submitted to *J Vasc Bras*.