

Implante de *stent* ductal por vía axilar en neonato con cardiopatía congénita con flujo pulmonar dependiente del conducto arterioso

Stent ductal implant by axillary via in a newborn with ductal dependent pulmonary blood flow

Rafael Lince Varela^{a,b,c}, Mateo Gómez Osorio^d, Alejandro Oquendo R.^d, Johanna Osorio^d, Juan Camilo Quintero^d, Valentina Soto^d

^aClínica CardioVID. Medellín, Colombia

^bHospital Universitario San Vicente Fundación. Medellín, Colombia

^cHospital Pablo Tobón Uribe. Medellín, Colombia

^dEstudiante de Internado. Facultad de Medicina. Universidad CES. Medellín, Colombia

Recibido: 7 de agosto de 2020; Aceptado: 5 de octubre de 2020

¿Qué se sabe del tema que trata este estudio?

El implante de *stent* ductal en conductos arteriosos con anatomías y orígenes inusuales, plantea retos para el intervencionismo cardiovascular pediátrico. La vía arterial axilar ofrece una opción segura y efectiva para el acceso a estos conductos.

¿Qué aporta este estudio a lo ya conocido?

Este reporte de caso demuestra la factibilidad de utilizar vías arteriales diferentes a la arteria femoral en pacientes de bajo peso que requieren implante de *stent* ductal en circulación pulmonar dependiente del conducto arterioso.

Resumen

El implante de *stent* en el conducto arterioso es una alternativa paliativa para neonatos con flujo pulmonar dependiente. **Objetivo:** Presentar una alternativa de acceso arterial para intervención percutánea en neonatos. **Caso Clínico:** Neonato a término con bajo peso, con diagnóstico de atresia pulmonar con septum interventricular intacto e hipoplasia grave de la válvula tricúspide con circulación coronaria dependiente. Por el riesgo quirúrgico y de daño arterial femoral y por la anatomía del conducto se decidió punción arterial axilar izquierda por donde se implantó exitosamente *stent* ductal coronario de 3,5 milímetros. Se presentó espasmo axilar que resolvió espontáneamente. **Conclusión:** Los accesos arteriales alternativos diferentes a la vía arterial femoral son una opción para neonatos de alto riesgo quirúrgico y bajo peso.

Palabras clave:

Cardiopatías
Congénitas;
Cateterismo Cardíaco;
Stents;
Uso Terapéutico;
Complicaciones

Correspondencia:
Rafael Lince Varela
rafalince@yahoo.com

Abstract

Ductus arteriosus stenting is a palliative alternative for neonates with ductal-dependent pulmonary flow. **Objective:** To present an alternative of arterial access for percutaneous coronary intervention in neonates. **Clinical Case:** A term neonate with low weight diagnosed with pulmonary atresia with intact ventricular septum and severe hypoplasia of the tricuspid valve with dependent coronary circulation. Due to the surgical risk and femoral artery damage and the anatomy of the ductus arteriosus, a left axillary arterial puncture was decided where a 3.5-millimeter coronary *stent* was successfully placed. The patient developed an axillary spasm that resolved spontaneously. **Conclusion:** Alternative arterial access other than the femoral artery route is an option for neonates with high surgical risk and low birth weight.

Keywords:

Congenital Heart Defects;
Cardiac Catheterization;
Stents;
Therapeutic Use;
Complications

Introducción

La implantación de *stent* en el conducto arterioso (CA) ha sido reportado como una alternativa paliativa a la fístula de Blalock-Taussig en neonatos con lesiones obstructivas al tracto de salida del ventrículo derecho^{1,2}. Este procedimiento permite flujo pulmonar de forma segura, mientras se realiza la corrección quirúrgica de las cardiopatías de base, además promueve el crecimiento de las ramas de las arterias pulmonares lo que se traduce en un mejor balance de la vasculatura pulmonar, lo que significa que las ramas pulmonares crecen de forma más simétrica³⁻⁵. Sin embargo, las variaciones en el origen, la orientación y la morfología del CA en aquellas cardiopatías congénitas donde se compromete el flujo pulmonar, hace necesario variar el abordaje habitual a través de la arteria femoral por lo difícil que resulta este acceso, cuando el ángulo ductal es mayor de 90°. Esta dificultad además se exagera por la naturaleza tortuosa del ductus arterioso en estos pacientes y en menores de 15 kg, el acceso femoral se ha asociado con mayor riesgo de trombosis^{6,7}.

Otros accesos vasculares que han sido empleados incluyen el abordaje por la vena femoral, sin embargo, no es una opción para todo tipo de cardiopatías y la arteria carótida, es otra opción efectiva para liberar el *stent* en neonatos con buena alineación del conducto^{7,8}. Otra aproximación es a través de la arteria axilar, la cual ha mostrado pocas complicaciones y de modo similar al acceso por la carótida, permite alineación directa con el conducto, más rápido acceso y una mayor posibilidad de éxito que cuando se compara con el acceso por la arteria femoral⁸.

El objetivo de este reporte de caso, fue presentar el manejo percutáneo de un neonato con atresia pulmonar al cual se le implantó un *stent* en el CA por vía axilar.

Caso Clínico

Neonato de sexo masculino de 37+1 semanas de edad gestacional con diagnóstico prenatal de retardo

en el crecimiento intrauterino tipo I. Parto vértice espontáneo, posición cefálica, APGAR 6 al minuto y 8 a los cinco minutos. Peso 2.180 g, talla 45 cm. Con mala adaptación neonatal, requirió presión positiva continua de la vía aérea (CPAP, por su sigla en inglés), por aumento del trabajo respiratorio e hipoxemia. Por deterioro respiratorio es trasladado a cuidados intensivos neonatales, allí se realizó intubación orotraqueal y se inició prostaglandina E1. La primera ecocardiografía mostró atresia pulmonar con septum intacto; saturación de O₂ 78%, FIO₂ 50%, frecuencia cardíaca 165 latidos por minuto, presión arterial 80/32/48 mmHg, ruidos cardíacos rítmicos con segundo ruido único. El neonato es remitido a centro cardiovascular de cuarto nivel para cardiopatías congénitas al segundo día de vida (figura 1).

Ayudas diagnósticas

Se le realizó ecocardiografía que reporta: atresia pulmonar con septum intacto, válvula tricúspide con hipoplasia grave (Z score -4.04) y flujos anormales compatibles con sinusoides intramiocárdicos y sospecha de circulación coronaria dependiente del ventrículo derecho por la presencia de sinusoides intramiocárdicos; CA permeable restrictivo con cortocircuito de izquierda a derecha, tortuoso con al menos dos curvas. No se observa origen del conducto de la curvatura menor del arco aórtico. Ramas pulmonares confluentes y estenosis leve en el origen de la rama izquierda. Foramen oval permeable no restrictivo con cortocircuito derecha a izquierda; hipertrofia e hipoplasia grave del ventrículo derecho; el ventrículo derecho bipartita; dilatación del atrio derecho.

Se realizó tomografía axial computadorizada que mostró arterias pulmonares confluentes, arteria pulmonar derecha de 2,5 mm e izquierda menor, de 1,8 mm CA permeable que se origina desde la cara lateral izquierda del arco aórtico con dirección anterior y medial hacia el aspecto dorsal de la arteria pulmonar izquierda proximal. El ductus mide 2,5 mm en su origen desde la aorta, 1,5 mm en el tercio medio y 2 mm

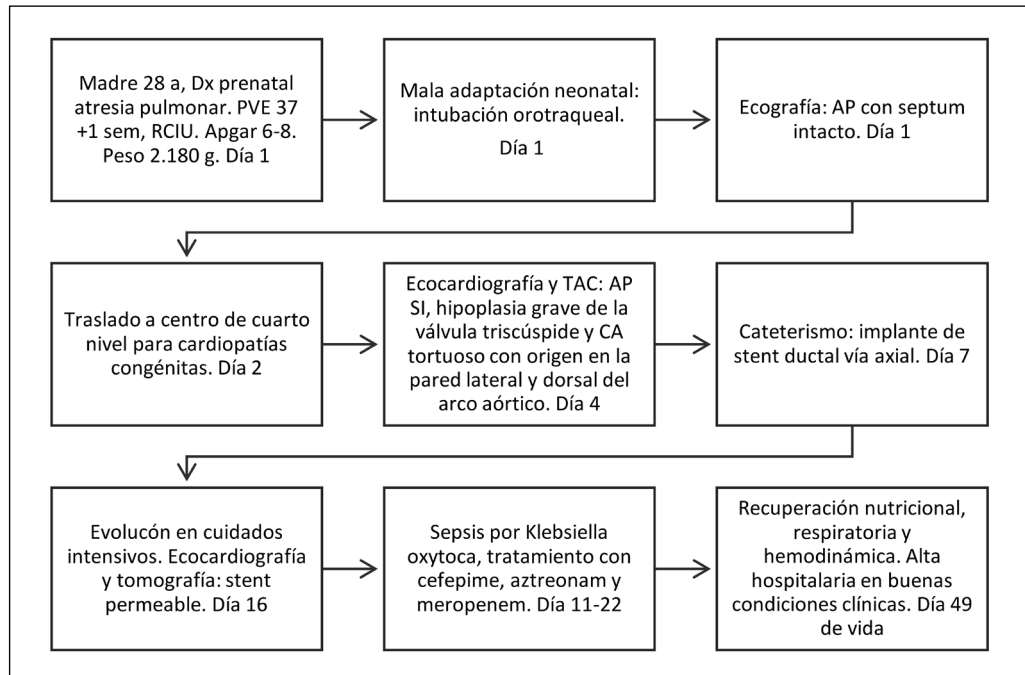


Figura 1. Línea de tiempo. RCIU: retardo crecimiento intrauterino; AP: atresia pulmonar; TAC: tomografía axial computerizada; SI: septum intacto; CA: conducto arterioso.

en su llegada la arteria pulmonar izquierda. Material de baja atenuación hacia la válvula tricúspide y pulmonar que se correlacionan con los diagnósticos conocidos de atresia pulmonar e hipoplasia tricúspidea. Configuración bovina del arco aórtico. Conexiones venosas sistémicas y pulmonares normales. Disminución significativa del diámetro del bronquio fuente izquierdo a 4 mm de la carina, de predominio en el plano anteroposterior (1 mm *versus* 4 mm del contralateral) por hipoplasia o broncomalacia. Se realizó reconstrucción

tridimensional y se decidió abordaje por vía axilar izquierda (figura 2).

Al cuarto día de vida del paciente, es discutido en reunión médico quirúrgica, en la cual participan pediatras cardiólogos (ecocardiografistas, hemodinamistas, intensivistas), cirujanos cardiovasculares pediátricos y anestesiólogos cardiovasculares pediátricos. Por tratarse de un neonato, de bajo peso, con un origen anómalo del CA, se decide llevar a cateterismo cardíaco para evaluar la circulación coronaria y la posibilidad de implantar *stent* ductal. Se decidió intentar el abordaje axilar porque se pensó que era la vía más directa para la implantación del *stent* si bien se discutió la posibilidad de un abordaje trans carotídeo el cual es otra opción para este tipo de anatomías complejas.

Cateterismo cardíaco

A los siete días de vida, es llevado a sala de cateterismo cardíaco con uso de sistema biplano (Allura Xper®, Phillips, Holanda). El paciente es ubicado en posición invertida (con los pies en la parte superior de la mesa) la cual permite un acceso a la arteria axilar izquierda del neonato, de forma segura y cómoda para los hemodinamistas, además de una adecuada visualización de los monitores de angiografía. El procedimiento se realizó con oxígeno al 100%, intubación orotraqueal bajo cuidado de anestesia cardiovascular se tomó consentimiento informado y medidas totales de protección personal por la pandemia COVID-19.

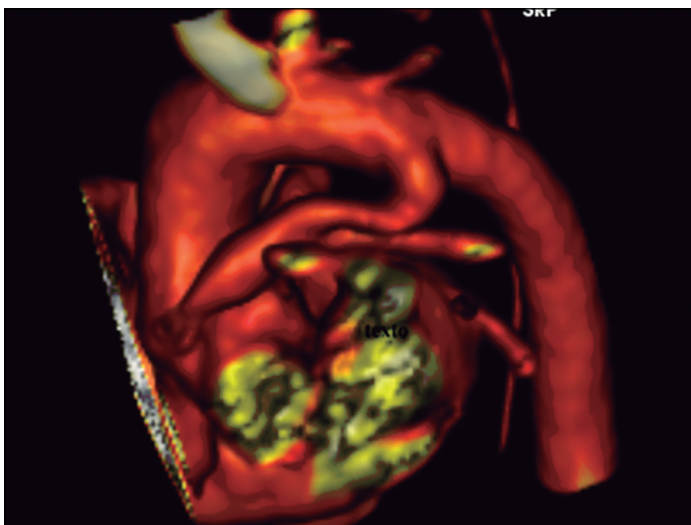


Figura 2. Representación volumétrica tridimensional del arco aórtico con configuración tortuosa del conducto arterioso.

Según protocolo institucional en pacientes con circulación pulmonar dependiente del CA la suspensión de la prostaglandina E1 se realizó 1 hora antes de iniciar el procedimiento.

Descripción del procedimiento

Bajo guía ecográfica vascular se realizó punción directa de la arteria axilar izquierda con aguja No. 21. Al obtener reflujo sanguíneo a través de la aguja se avanzó una guía de micro punción de 0,18'', se retiró la aguja y sobre la guía se avanzó un introductor 4 French (F) *Terumo*®. A través de este introductor se avanzó un catéter *Non Taper Angle*® (Glidecath Radiofocus, Tokio), 4F sobre guía hidrofílica 0,035''. En la angiografía con inyección manual se observó compromiso coronario bilateral. La arteria coronaria derecha con atresia distal, solo se identificó la región proximal de la coronaria y en la arteria coronaria izquierda se observan zonas de estenosis graves en la descendente anterior. Por lo cual se consideró que la circulación coronaria era dependiente del ventrículo derecho al no llenar adecuadamente en forma anterógrada. Se realizó aortograma torácico para evaluar las dimensiones del CA: extremo pulmonar 1,5 milímetros, extremo aórtico 3 mm y longitud de 8 mm. Se avanzó con dificultad la guía coronaria *Balance Heavy Weight*® (Abbott, Estados Unidos), 0,014'', hasta las ramas pulmonares por las zonas de estenosis y el nacimiento anómalo del CA en la aorta. Por la dificultad para el avance de la guía por lo tortuoso del CA se pasó un micro catéter distal en la rama derecha y se avanzó más profundo la guía. Se logró posicionar distalmente la guía en la rama derecha

de la arteria pulmonar y posteriormente se avanzó una guía 0,014 distal en la rama izquierda para hacer la técnica de "buddy wire" (consiste en el uso de dos guías simultáneas lo cual facilita el avance del *stent* en el CA), la cual avanzó sin complicaciones.

Se avanzó un *stent* medicado *Resolute Onix* (Medtronic®, Irlanda) de 3,5 mm por 12 mm el cual se implantó en el CA a 10 atmósferas de presión. El diámetro del *stent* se seleccionó en función del peso del paciente y la longitud con base en las mediciones angiográficas y tomográficas, buscando cubrir completamente todo el CA para evitar dejar áreas del mismo no cubiertas por el *stent*.

La angiografía de control mostró el *stent* en buena posición, con llenado completo de las ramas pulmonares sin extravasación de medio de contraste y espasmo de la arteria axilar. No se presentaron otras complicaciones. El tiempo de fluoroscopia fue de 49 min, el tiempo de cateterismo fue 120 min y se utilizaron 25 ml de medio de contraste no iónico (figuras 3 y 4).

Cuidados intensivos

Una vez finalizado el cateterismo, el paciente regresó a la unidad de cuidados intensivos para soporte ventilatorio y cuidado integral. Fue anticoagulado por vía intravenosa con heparina a 28 unidades x kilogramo de peso x hora, para evitar la trombosis aguda del *stent* y manejo del espasmo arterial con control de tiempo parcial de tromboplastina y posterior cambio a tratamiento antiagregante con aspirina y clopidogrel. Al día siguiente el paciente había resuelto el espasmo y tenía pulso radial presente.

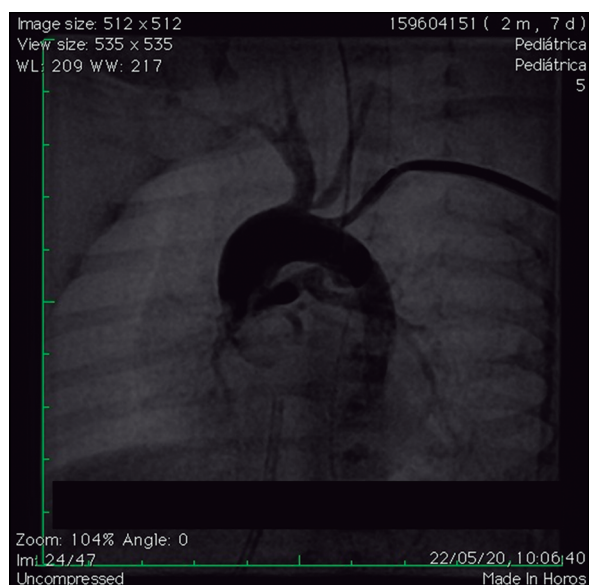


Figura 3. Angiografía vía arteria axilar izquierda. Conducto arterioso tortuoso con origen en región inferior aórtico.

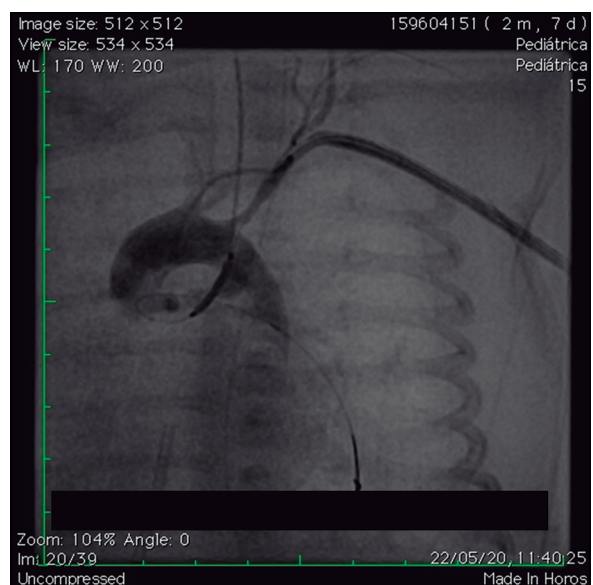


Figura 4. Angiografía vía arteria axilar. Conducto arterioso permeabilizado con el *stent*.

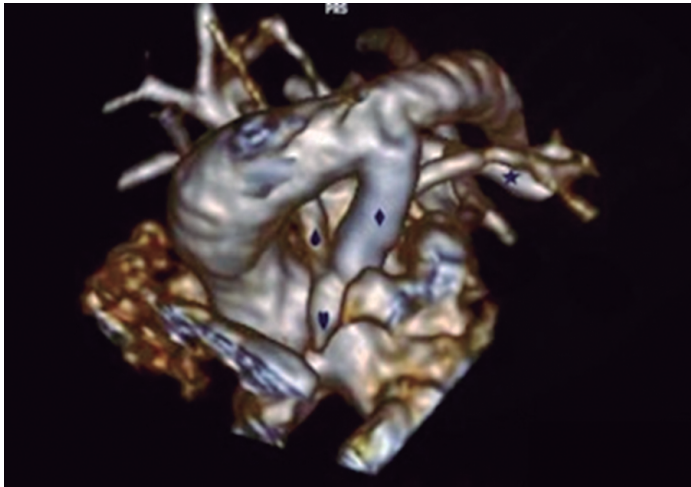


Figura 5. Representación volumétrica tridimensional del stent ductual.

Uno de los eventos fisiopatológicos que se pueden presentar en este tipo de pacientes es el hiperflujo pulmonar que puede desencadenar una insuficiencia cardíaca congestiva de difícil control. Este evento fisiopatológico depende en gran medida del tamaño del *stent* implantado. Otra complicación frecuente en este tipo de pacientes es fenómeno del “robo diastólico” el cual se presenta al caer la presión arterial diastólica, lo cual genera insuficiencia coronaria e isquemia. Ninguna de estas dos complicaciones se presentó en nuestro paciente.

Durante la evolución, el neonato presentó episodios de desaturación e hipoxemia, para lo cual se solicitó ecocardiograma y tomografía, los cuales mostraron permeabilidad del *stent* (figura 5). Posteriormente, se diagnosticó sepsis por *Klebsiella oxytoca* (R) para lo cual fue tratada con antibiótico con negativización de los hemocultivos. Luego de 22 días de hospitalización en cuidados intensivos fue trasladado a hospitalización de cardiología pediátrica donde permaneció por 27 días más hasta que se resolvió la sepsis, los problemas para la alimentación enteral y se hizo un seguimiento estrecho de la evolución del paciente y el *stent*.

Los 49 días de hospitalización se explican no solo por lo complejo de la cardiopatía, y los riesgos inherentes a la estadía en cuidados intensivos como el descondicionamiento físico, la pérdida de la nutrición enteral, el uso de catéteres centrales y la sepsis, sino también por las circunstancias socio-familiares.

Se obtuvo consentimiento informado. Se garantizó la confidencialidad de la información. Se cumplieron las normas éticas internacionales para investigación relacionada con la salud con seres humanos, elaboradas por el Consejo de Organizaciones Internacionales de las Ciencias Médicas (CIOMS). Este manuscrito se

preparó siguiendo las guías CARE para reporte de casos⁹.

Discusión

Se describe la implantación de un *stent* medicado ductal por vía axilar en un neonato de siete días de vida y bajo peso, con circulación pulmonar flujo dependiente del CA, secundario a atresia pulmonar con septum interventricular intacto, hipoplasia grave de la válvula tricúspide y circulación coronaria dependiente del ventrículo derecho.

Los primeros reportes de esta vía de acceso para intervencionismo neonatal, se remontan al año 2004 con Michel-Behnke, et al., posteriormente, este mismo grupo publica otras series de casos con énfasis en la técnica. En el conocimiento de los autores, son pocos los casos descritos en Latinoamérica de acceso vascular axilar para implantación de *stent* en CA¹⁰⁻¹². En Brasil, se reportó esta técnica por Arrieta et al., en una serie de casos que incluyó cinco pacientes con implante de *stent* en CA, con edades en un rango de cuatro a nueve días de vida¹⁰.

El abordaje axilar, representa una alternativa al acceso femoral en pacientes como el descrito aquí (neonato de bajo peso) en quienes el riesgo de lesión arterial femoral es alto. La ventaja potencial del abordaje axilar es el acceder al CA con anatomía compleja que no permite el fácil abordaje por vía femoral. Por tanto, este tipo de abordaje puede ser preferido para CA que nacen de la región inferior del arco aórtico con un ángulo agudo^{2,6,8}. El implante de un *stent* ductal por vía axilar, es un enfoque relativamente novedoso, por lo tanto, solo se cuenta con pequeñas series de casos, que muestran la factibilidad de este abordaje¹⁰. En nuestro paciente, el implante del *stent* ductal fue exitoso teniendo como complicación el espasmo de la arteria axilar el cual resolvió durante la hospitalización en cuidados intensivos. Este tipo de complicación ha sido descrita por Breatnach et al., en un estudio que incluyó 20 pacientes de los cuales el 15% tuvo complicaciones en la arteria axilar (2 con disección parcial, 1 pseudoaneurisma)⁵. Otra ventaja adicional del abordaje axilar es el buen suministro de circulación colateral de esta arteria, lo cual permite proteger la arteria femoral que no ofrece esta ventaja¹⁸.

Si bien, se han presentado avances en la implantación de *stent* ductal, desde su introducción en 1992, persiste una proporción de intentos fallidos, especialmente cuando se trata de implantarlo por vía arteria femoral en CA con origen anormal de la aorta. En neonatos, la experiencia en estos casos es incluso menor¹¹⁻¹⁴. En cuanto a la implantación de *stent* medicado en neonatos y en este caso de bajo peso, es escasa

la experiencia actualmente disponible. Se han descrito niveles altos del medicamento (zotarolimus), hasta 20 veces y depuración más baja, hasta 30 veces, comparado con niños mayores y adultos. Sin embargo, dada la necesidad de garantizar que el *stent* permanezca permeable y que la proliferación neointimal sea menor, se ha permitido el uso creciente de este tipo de *stent* incluso en neonatos. En cuanto a los efectos secundarios o complicaciones de estos *stent* medicados, se ha descrito que los niveles de inmunosupresión son bien tolerados en este tipo de pacientes¹¹. Estudios multicéntricos recientes comparan esta técnica percutánea con el manejo quirúrgico, dentro de las conclusiones se menciona la no diferencia en el desenlace primario (muerte o reintervención no planeada para tratar la cianosis), sin embargo, otros marcadores de morbilidad y tamaño de la arteria pulmonar favorecen al grupo intervenido con *stent*, lo cual soporta que el *stent* ductal es una alternativa razonable a la fístula quirúrgica en pacientes seleccionados. El *stent* ductal está emergiendo como una alternativa preferida a la fístula quirúrgica para el tratamiento paliativo de neonatos con flujo pulmonar dependiente del CA, por mayor estabilidad^{12,13}.

Este caso permite identificar riesgos como el espasmo arterial axilar, así como las dificultades propias de la técnica del implante del *stent* ductal en CA con anatomía compleja que hace necesario el uso de herramientas adicionales como los micro catéteres que permiten posicionar en forma más precisa las guías y lograr mayor estabilidad para el avance del *stent*. Como lección aprendida la vía arterial axilar es otra opción para el abordaje intervencionista de cardiopatías congénitas complejas. Este tipo de abordaje puede hacerse más frecuente a medida que se disponga de mejor tecnología con introductores de más bajo perfil y se incrementa la curva de aprendizaje de los hemodinamistas pediátricos.

Referencias

1. Glatz AC, Petit CJ, Goldstein BH, et al. Comparison between patent ductus arteriosus stent and modified Blalock-Taussig shunt as palliation for infants with ductal-dependent pulmonary blood flow: insights from the congenital catheterization research collaborative. *Circulation*. 2018;137(6):589-601.
2. Bentham JR, Zava NK, Harrison WJ, et al. Duct stenting versus modified Blalock-Taussig shunt in neonates with duct-dependent pulmonary blood flow: associations with clinical outcomes in a multicenter national study. *Circulation*. 2018;137(6):581-8.

3. Santoro G, Capozzi G, Caianiello G, et al. Pulmonary artery growth after arterial duct stenting in completely duct-dependent pulmonary circulation: arterial duct stenting versus surgical shunt. *J Am Coll Cardiol*. 2009;54(23):2180-6.
4. Santoro G, Capozzi G, Caianiello G, et al. Pulmonary artery growth after arterial duct stenting in completely duct-dependent pulmonary circulation. *Heart*. 2016;102(6):459-64.
5. Breatnach CR, Aggarwal V, Al-Alawi K, et al. Percutaneous axillary artery approach for ductal stenting in critical right ventricular outflow tract lesions in the neonatal period. *Catheter Cardiovasc Interv*. 2019;1-7. DOI: 10.1002/

ccd.28302.

6. Ding L, Pocket C, Moore J, El-Said H. Long sheath use in femoral artery catheterization in infants < 15 kg is associated with a higher thrombosis rate: proposed protocol for detection and management. *Catheter Cardiovasc Interv*. 2016;88(7):1108-12.
7. Choundry S, Balzer D, Murpy J, Nocolas R, Shahnavaz S. Percutaneous carotid artery access in infants > 3 months of age. *Catheter Cardiovasc Interv*. 2016;87(4):757-61.
8. Rehman R, Marhisham MC, Alwi M. Stenting the complex patent ductus arteriosus in tetralogy of Fallot with pulmonary atresia: challenges and

Conclusión

Se presentó el caso clínico de un neonato en la primera semana de vida, con bajo peso, al cual se le implantó un *stent* en el CA de morfología atípica (vertical), por acceso arterial axilar. Como complicación temprana del procedimiento, el neonato tuvo espasmo de la arteria axilar el cual se resolvió espontáneamente. Finalmente, se requiere más estudios para establecer la seguridad de este abordaje vascular y las implicaciones clínicas del mismo.

Responsabilidades Éticas

Protección de personas y animales: Los autores declaran que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki.

Confidencialidad de los datos: Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado: Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Agradecimientos

Dr. Rafael Correa Velásquez

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

- outcomes. *Future Cardiol.* 2019;14(1):55-73.
9. Riley DS, Barber MS, Kienle GS, et al. CARE guidelines for case reports: explanation and elaboration document. *J Clin Epidemiol.* 2017;89:218-35.
 10. Dua JS, Osborne NJ, Tometzki AJ, Martin RP. Axillary artery approach for balloon valvuloplasty in Young infants with severe aortic valve stenosis: medium-term results. *Catheter Cardiovasc Interv.* 2006;68(6):929-35.
 11. Lee KJ, Seto W, Benson L, Chaturvedi RR. Pharmacokinetics of sirolimus-eluting stents implanted in the neonatal arterial duct. *Circ Cardiovasc Interv.* 2015;8:e002233.
 12. Glatz AC, Petit CJ, Goldstein BH, et al. Comparison between patent ductus arteriosus stent and modified Blalock-Taussig shunt as palliation for infants with ductal-dependent pulmonary blood flow. *Circulation.* 2018;137(6):589-601.
 13. Bentham JR, Zava NK, Harrison WJ, et al. Duct stenting versus modified Blalock-Taussig shunt in neonates with duct-dependent pulmonary blood flow: associations with clinical outcomes in a multicenter national study. *Circulation.* 2018;137(6):581-8.