



ORIGINAL

Fístula aorto-entérica y ley de Murphy

Aorto-enteric fistula and Murphy's law

Francisco S. Lozano¹, Felipe Parreño², María Parra³, José I. González⁴, Rubén Peña⁵, Elisa Diego⁶, Carola Rubio¹

¹ MD, PhD, FACS, FACA. Jefe servicio y catedrático de cirugía. Servicio de Angiología y Cirugía Vascul. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca (CAUSA). Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Universidad de Salamanca (USAL). España

² MD, PhD. Médico adjunto y profesor asociado de cirugía. Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca (CAUSA). Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Universidad de Salamanca (USAL). España

³ MD. Médico adjunto. Servicio de Angiología y Cirugía Vascul. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca (CAUSA). Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Universidad de Salamanca (USAL). España

⁴ MD. Médico adjunto y profesor asociado de cirugía. Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca (CAUSA). Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Universidad de Salamanca (USAL). España

⁵ MD. Médico adjunto y profesor asociado de cirugía. Servicio de Angiología y Cirugía Vascul. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca (CAUSA). Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Universidad de Salamanca (USAL). España

⁶ MD. Residente de cirugía. Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca (CAUSA). Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Universidad de Salamanca (USAL). España

⁷ MD, PhD. Médico adjunto y profesor asociado de cirugía. Servicio de Angiología y Cirugía Vascul. Complejo Asistencial Universitario de Salamanca (CAUSA). Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Universidad de Salamanca (USAL). España

* Autor para correspondencia.
Correo electrónico: lozano@usal.es (Francisco S. Lozano Sánchez).

Recibido el 4 de mayo de 2020; aceptado el 13 de mayo de 2020.

Cómo citar este artículo:

Lozano FS, Parreño F, Parra M, González JI, Peña R, Diego E, Rubio C. Fístula aorto-entérica y ley de Murphy. JONNPR. 2020;5(7):702-20. DOI: 10.19230/jonnpr.3727

How to cite this paper:

Lozano FS, Parreño F, Parra M, González JI, Peña R, Diego E, Rubio C. Aorto-entérica fistula and Murphy's law. JONNPR. 2020;5(7):702-20. DOI: 10.19230/jonnpr.3727



This work is licensed under a Creative Commons Attribution-NonCommercial-ShareAlike 4.0 International License
La revista no cobra tasas por el envío de trabajos,
ni tampoco cuotas por la publicación de sus artículos.



Resumen

Objetivo. Reflejar nuestra frustración al perder un paciente, no porque su infrecuente patología sea de por sí muy grave, sino por el acumulo sobreañadido de otros motivos diagnósticos, y terapéuticos en un entorno hospitalario de epidemia Covid-19.

Método. Primero describimos el proceso diagnóstico, terapéutico y evolutivo (27 febrero al 25 marzo 2020) de un varón de 73 años portador de una fístula aorto-entérica secundaria a un bypass aorto-bifemoral, implantado doce años antes en otro hospital. Después presentamos nuestra experiencia (1978-2020) en este tipo de situaciones, y finalmente realizamos una revisión de la literatura (1953-2020) al respecto.

Resultados. A) Caso clínico: ausencia de diagnóstico precoz, fracaso de la técnica operatoria elegida, importantes complicaciones postoperatorias (hemorragia, infarto cerebral y neumonía bilateral por coronavirus) que finalizo en exitus. B) Experiencia personal: cuatro casos (incluido el referido). C) Revisión de la literatura: tres revisiones sistemáticas: 564 casos (1953-1993); 386 casos en 58 publicaciones (1991-2006), 823 pacientes en 216 publicaciones (1995-2015) y 20 casos en 14 publicaciones (2016-2020).

Conclusión. Si en situaciones normales una fístula aorto-entérica es una condición que amenaza seriamente la vida del paciente (hemorragia y/o infección), no debe extrañar que en situaciones excepcionales esa situación de gravedad se incremente. No obstante, de estas malas experiencias estamos obligados a sacar enseñanzas que beneficien a otros en el futuro.

Palabras clave

Fístula aortoentérica; fistula aortoduodenal; fistula aortoentérica secundaria; fistula aortoduodenal secundaria; fístula protésico-entérica; fistula paraprotésica; erosión protésico-entérica

Abstract

Objective. To reflect our frustration when losing a patient, not because their infrequent pathology is in itself very serious, but because of the accumulation of other diagnostic and therapeutic reasons in a hospital environment of the Covid-19 epidemic.

Method. First we describe the diagnostic, therapeutic and evolutionary process (February 27 to March 25, 2020) of a 73-year-old male with an aorto-enteric fistula secondary to an aorto-bifemoral bypass, implanted twelve years earlier in another hospital. Then we present our experience (1978-2020) in this type of situation, and finally we carried out a review of the literature (1953-2020) in this regard.

Results. A) Clinical case: absence of early diagnosis, failure of the chosen operative technique, significant postoperative complications (hemorrhage, cerebral infarction and bilateral coronavirus pneumonia) that ended in death. B) Personal experience: four cases (including the referred one). C) Literature review: three systematic reviews: 564 cases (1953-1993); 386 cases in 58 publications (1991-2006), 823 patients in 216 publications (1995-2015) and 20 cases in 14 publications (2016-2020).



Conclusion. If in normal situations an aorto-enteric fistula is a condition that seriously threatens the patient's life (hemorrhage and / or infection), it should not be surprising that in exceptional situations this serious situation increases. However, from these bad experiences we are obliged to draw lessons that will benefit others in the future.

Keywords

Aortoenteric fistula; aortoduodenal fistula; secondary aortoenteric fistula; secondary aortoduodenal fistula; graft-enteric fistulas; paraprostatic fistula; graft-enteric erosions

Aportación a la literatura científica

A) Qué aporta el estudio realizado al conocimiento ya existente.

Presenta un paciente portador de una fístula aorto-entérica secundaria a un bypass aorto-bifemoral. Esta patología habitualmente de difícil diagnóstico y complejo tratamiento se complicó y finalizó con el fallecimiento del paciente, todo ello en un entorno hospitalario del Covid-19.

No es habitual presentar resultados negativos de la práctica clínica vascular y no hemos encontrado referencias similares en la literatura revisada. Parafraseando a la ley de Murphy y algunos de sus corolarios: "Una crisis consiste en no poder decir: olvidemos ese tema (precepto de Ferguson) o "El buen juicio proviene de las malas experiencias" (ley de Higdon). Por tanto, 1) no debemos olvidar esta pesadilla que supuso el caso presentado, y 2) debemos sacar de ella conclusiones positivas para el futuro.

B) Implicaciones de los resultados obtenidos, para la práctica, y la investigación en general

Aporta varios puntos para el aprendizaje:

- Todo paciente con el antecedente de una cirugía aórtica (con prótesis o incluso endoprótesis) y que presente una hemorragia digestiva alta tiene una fístula aorto-entérica hasta que se demuestre lo contrario.
- Tener un alto índice de sospecha es crucial para un diagnóstico precoz.
- Reconocer el "sangrado precoz" como señal de alarma.
- La asociación TAC y endoscopia permiten confirmar el diagnóstico.
- La fístula aorto-entérica es una urgencia quirúrgica.
- Sin cirugía las fístulas aorto-entéricas secundarias son una condición letal; con cirugía pueden superar el 50%.



- El tratamiento ideal, siempre que sea posible, sería un planteamiento quirúrgico en dos tiempos: primero endovascular y posterior cirugía abierta.

Introducción

Una fístula aorto-entérica (FAE) es una comunicación anormal entre la aorta y el intestino. Sus características más significativas son: baja frecuencia, complejo tratamiento y elevada mortalidad.

Las FAE se clasifican en primarias (aneurismas, infecciones, traumatismos, o radioterapia), y secundarias a cirugía aórtica previa. Entre las últimas, existe una variante denominada fístulas paraprotésicas o erosiones (entre el cuerpo o ramas de la prótesis con el intestino), bien diferente a una verdadera FAE (que comunica la línea de sutura prótesis-aorta con el intestino) ⁽¹⁾. La primera descripción, lógicamente de una FAE primaria la realizó Astley Cooper (1829); el primer caso de FAE secundario, fue reportado por Block (1953). Para otros hechos históricos ver Tabla 1. ⁽¹⁻²⁾

Tabla 1. Fístulas aorto-entéricas. Hechos históricos

Autor	Año	Hecho histórico
Cooper	1829	Primera descripción de una FAE (primaria)
Block	1953	Primer caso reportado
Claytor	1956	Primera caso con una prótesis
MacKenzie	1958	Primera operación con éxito (operación in situ)
Gryka	1959	Primera descripción de erosión aorto-entérica
Crawford	1960	Propone cirugía urgente ante hemorragia centinela
Donovan	1967	Diferencia FAE con/sin infección
Youmans	1967	Describe el termino fístula entero-protésica
Mirmadjelassi	1967	Primer diagnóstico endoscópico
Ehrenfeld	1968	Propone la exéresis total + bypass axilo-bifemoral
Szylagvi	1972	Primero en proponer los términos FAE y FPP
Prinkerton	1972	propone el control intra-aórtico con balón
Elliott	1973	Primera descripción de rotura del muñón aórtico
Klenmann	1979	Propone un algoritmo de tratamiento
Martin	1980	Propone la cirugía en varios tiempos
Parodi	1992	Introduce las endoprótesis aorticas

Modificada de Blunt (1994) ⁽¹⁾
FAE, fístula aorto-enterica; FPP, fístula paraprotésica



Son poco frecuentes (incidencia anual de 0,007/millón de habitantes), siendo las primarias excepcionales (incidencia del 0,04-0,07%). Más frecuentes son las secundarias, con una incidencia del 0,5-2% después de cirugía aortica ⁽¹⁻⁵⁾. La mayoría (50-80%) afectan al duodeno, en su tercera o cuarta porción ⁽³⁻⁶⁾.

Aunque la exacta patogenia es especulativa, las fístulas primarias surgen en pacientes con aneurismas de la aorta que al crecer perforan la luz digestiva, comportándose como una excepcional complicación evolutiva de los aneurismas. En las fístulas secundarias a cirugía aortica se menciona la presión mecánica de la prótesis implantada contra el intestino adyacente o por infecciones periprotésicas de baja virulencia (*Biofilm*) ^(1-3,7). Conjuntamente, Bergqvist y cols ⁽⁸⁾ han recogido 16 FAE secundarias a endoprótesis; la incidencia es más baja que por cirugía abierta, pero la clínica es similar.

En este contexto, el objetivo de la presente publicación es presentar: 1) un resultado negativo, a propósito de un caso; 2) nuestra experiencia en los últimos 40 años; y 3) una revisión de la literatura.

Material y Método

1) Presentamos un paciente portador de una FAE secundaria, diagnosticada y tratada en el Hospital Universitario de Salamanca. El caso se desarrolló durante la actual pandemia Covid-19 (marzo 2020).

2) Presentar la experiencia personal sobre FAE, en los servicios de Cirugía General (1978-1990) y Angiología y Cirugía Vasculat (1991-2020) del Hospital Universitario de Salamanca.

3) Realizar una revisión de la literatura sobre FAE secundarias, entre 1953-2020. Se ha realizado una búsqueda en Pubmed/Medline y dos revistas españolas (Cirugía Española y Angiología). Se utilizaron las siguientes palabras clave: Fístula aortoentérica, fístula aortoduodenal, fístula aortoentérica secundaria, fístula aortoduodenal secundaria, fístula protésico-entérica, fístula paraprotésica, erosión protésico-entérica.

Resultados

a) Caso clínico

Varón de 73 años que acude a urgencias (27/2/2020) por hematemesis y melenas (caída al suelo sin pérdida de conciencia). Antecedentes de EPOC, apnea del sueño, esteatosis hepática, pielonefritis litiásica, herpes zoster, osteoporosis, claudicación intermitente,



e insomnio. Factores de riesgo cardiovascular: HTA, dislipemia, fumador (20 cig./día), no diabetes mellitus. Antecedentes quirúrgicos: bypass aorto-bifemoral hace 12 años en Bilbao y meniscectomía. Alergia a buscapina. Medicación: Adiro[®] 100 mg, Simvastatina 20 mg, Esidrex[®] 25 mg, Deprax[®] 100, Spiriva[®] 10 mg, y Paracetamol 1 gr. El paciente no presenta repercusión hemodinámica (PA, 168/71 mmHg; FC, 62 lpm; SaO₂, 98%; temperatura, 35,6° C) ni hematimétrica (3.77 hematíes/uL; hemoglobina 11,6 g/dL; hematocrito 34,1%); resto del hemograma y analítica normal (coagulación, bioquímica, gasometría y PCR). Es dado de alta, con una cita para el servicio del aparato digestivo.

Al día siguiente, en la referida consulta, se solicita endoscopia (28/2/2020): Esofagitis grado A de Los Angeles. Alteraciones inflamatorias de la mucosa gástrica (se toman biopsias para estudio de *H. pylori*). Duodenitis erosiva con úlcera péptica Forrest IIc. No sangrado activo. El 4/3/2020, se recibe el informe de anatomía patológica: Gastritis crónica leve, atrofia leve con metaplasia intestinal que afecta al 30% del tejido estudiado y actividad inflamatoria aguda leve; no *H. pylori*. Un informe microbiológico del mismo día (28/2/2020) informa de bacteriemia por *E. coli* y *Str. mitis*, sensibles a amoxicilina-ácido clavulánico.

Tres días después ingresa en el servicio del aparato digestivo (2/3/2020): Paciente estable; hemograma (3,13 hematíes/uL; hemoglobina 9,8 g/dL; hematocrito 27,5%). Ante su mejoría y el informe endoscópico referido, se decide el alta con el diagnóstico de hemorragia digestiva alta secundaria a úlcera duodenal Forrest IIc, en paciente en tratamiento antiagregante. Se propone revisión al mes y se pauta Esomeprazol[®] 40 mg/d y Ferrosanol[®] 100 mg/d.

Diez días después, reingresa en el mismo servicio (12/3/2020) por persistencia de las melenas. Constantes: PA, 97/59 mmHg; FC, 73 lpm; SaO₂ 98%; temperatura 36,5°C. Analítica: 3.19 hematíes/uL; hemoglobina 9,8 g/dL; hematocrito 28,5%; leucocitos 12.60 x 10³; PCR 37 mg/dL. Exploración abdominal normal (blando, depresible, no doloroso a la palpación, no se palpan masas, no signos de irritación peritoneal y auscultación normal). Tacto rectal: dedo manchado de heces negras. Se realiza de urgencia TAC abdomino-pélico con contraste y esofágo-gastro-duodenoscopia, cuyos hallazgos son: a) TAC: No aire extraluminal, líquido libre ni colecciones definidas. Bypass permeable. No extravasaciones de contraste. Sin signos de patología abdominal urgente (Figura 1). b) Endoscopia: Anillo de Schatzki, en tercio inferior de esófago. En segunda porción duodenal úlcera de 10 mm descrita previamente, con fondo necrótico, bordes regulares sobre elevados que se biopsian por posibilidad de malignidad. Bulbo sin alteraciones. No se visualizan restos hemáticos.



Figura 1. TAC abdominal con contraste intravenoso. Prótesis aorto-bifemoral permeable, sin signos de complicación.

Con estos hallazgos se diagnóstica de hemorragia digestiva alta (HDA) por úlcera duodenal refractaria al tratamiento médico. Las melenas persisten y el 16/3/2020 presenta una nueva hematemesis, que obliga a varias transfusiones. Se solicita nueva endoscopia (17/3/2020): En segunda porción duodenal por debajo de la papila se visualiza prótesis asomando en duodeno con un orificio de unos 10 x 10 mm, sin sangrado activo en estos momentos. Sugerente de fístula aorto-entérica (Figura 2).

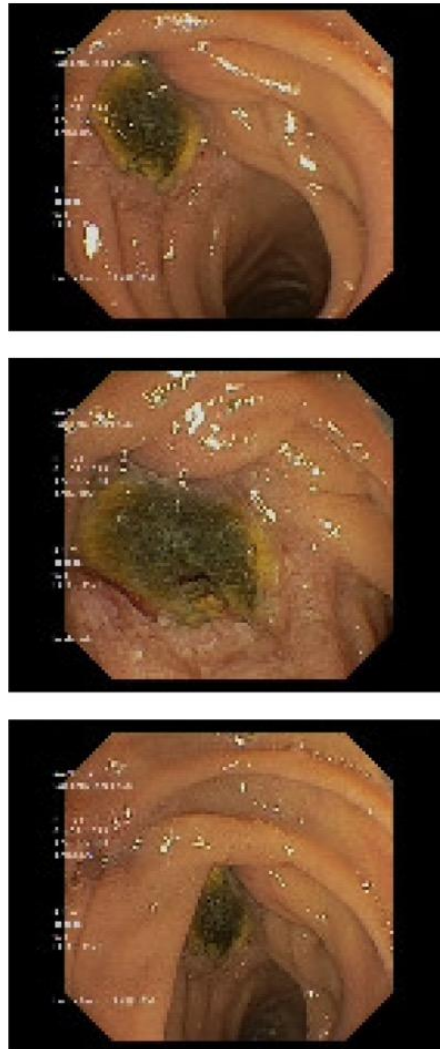


Figura 2. Esófago-gastro-duodenoscopia. Erosión del duodeno con prótesis vascular visible.

Conocido el informe endoscópico se contacta con el servicio de cirugía vascular. Se propone cirugía urgente cuanto sea posible (paciente estable y en fase de transfusiones: hemoglobina 7,9 gr/dL). La cirugía da comienzo a las 13.00 h del 18/3/2020, por problemas de disponibilidad de quirófano; el paciente continuaba estable, sin sangrado activo y hemoglobina, 10,9 gr/dL.

Técnica quirúrgica: Incisión xifo-pubiana sobre cicatriz de laparotomía media previa. Liberación de múltiples adherencias. Cavity abdominal sin datos macroscópicos de sangrado e infección. Abordaje retroperitoneal laborioso por intensa fibrosis. Control de la aorta



abdominal infrarenal. En ese momento se solicita la colaboración del servicio de cirugía general. Ellos liberan el duodeno, apreciando una ulceración íntimamente adherida a la prótesis aórtica pero sin existir fistulización con la misma. La prótesis esta íntegra y sin sangrado. No signos de infección macroscópica. Se realiza sutura primaria de la lesión duodenal. Lavado local con rifampicina. Finalmente se interpone epiplón entre duodeno y prótesis vascular. Revisión de la hemostasia y cierre habitual de la laparotomía.

A las 4 horas de finalizada la cirugía, una ecografía informa de hemoperitoneo. El paciente es reintervenido, objetivando 2.700 cc de sangre. Se aprecia una fuga a nivel de la prótesis aórtica en su cara postero-lateral derecha y zona de la anastomosis aorto-protésica, y un pequeño sangrado de la vena gonadal izquierda. Sutura del duodeno íntegra. Nuevamente no se aprecia macroscópicamente infección protésica. Con estos hallazgos y dada la situación del paciente se decide sutura con prolene 2/0 del orificio aórtico, y ligadura-sección de la vena gonadal. Aplicación de Flosil[®] sobre la zona de sutura. Comprobación de hemostasia y colgajo de epiplón sobre lecho aorto-duodenal.

Al día siguiente (19/3/2020), un TC craneal informa de hipodensidad cortico-subcortical en el territorio de la arteria cerebral media derecha, compatible con lesión isquémica establecida.

El 25/3/2020, llega el diagnóstico patológico de las biopsias duodenales (segunda endoscopia), que informan de tejido ulcerado sin evidencia de malignidad. Ese día el paciente fallece en la unidad de reanimación afecto de una neumonía bilateral y determinación del Covid-19 positivo.

b) Experiencia personal (1978-2020)

En este periodo hemos tratado 4 pacientes portadores de fistulas entre la aorta y el aparato digestivo (Tabla 2). Los tres primeros casos ya fueron publicados ⁽⁹⁻¹⁰⁾; el cuarto paciente es el actual.



Tabla 2. Fistulas entre la aorta y el aparato digestivo. Experiencia personal (1978-2020)

Nº	Año	Sexo/edad	Localización	Tipo de fístula	Etiología (patogenia)	Tratamiento	Resultado
1	1983	H/35	Aorta torácica-esófago	Primaria	Aneurisma aorta torácica traumático	Cirugía (1)	Exitus*
2	2005	H/72	Aorta abdominal-duodeno	Primaria	Aneurisma aorta abdominal	Cirugía (2)	Supervivencia
3	2006	H/63	Aorta abdominal-duodeno	Primaria	Aneurisma aorta abdominal	Cirugía (2)	Supervivencia
4	2020	H/73	Aorta abdominal-duodeno	Secundaria	Prótesis de dacrón aorto-bifemoral	Cirugía	Exitus*

(1) Publicado en J Thorac Cardiovasc Surg 1984;87(1):148-9.

(2) Publicados en J Gastointest Surg 2008;12(9):1561-5.

* En el postoperatorio precoz.



c) Revisión de la literatura sobre las FAE secundarias (1991-2020)

Hemos encontrado tres revisiones en FAE secundarias. El primero de Blunt ⁽¹⁾ quien entre 1953 y 1993 recopila 564 casos; el segundo de Martínez y cols ⁽¹¹⁾, entre 1991 y 2006, que seleccionan 58 publicaciones con 386 pacientes; y el tercero de Kakkos y cols ⁽¹²⁾, realizado entre 1995-2015, que incluye los resultados de 823 casos procedentes de 216 publicaciones.

Entre el 2016 y 2020, hemos identificado 20 publicaciones. Una vez excluidas seis (2 FAE primarias, 2 revisiones y 1 fistula aorto-esofágica), trece eran casos aislados y una aportaba siete casos ⁽¹³⁾. En esta última, su abordaje era retirar la prótesis problema y una reconstrucción “in situ” con la vena femoral superficial; supervivencia, a 30 días, del 86%.

Por tanto, en 66 años (fecha del primer caso reportado), el número de FAE secundarias publicadas en la literatura no supera los 1.793 casos (Tabla 3).



Tabla 3. Revisiones sistemáticas: Métodos terapéuticos y mortalidad en pacientes con fístulas aorto-entéricas secundarias.

Método	Blunt (hasta 1993) (1)		Martínez Aguilar y cols (1991-2006) (2)			Kakkos y cols (1995-2015) (3)	
	N (%)	Mortalidad (%)	N (%)	Mortalidad precoz y tardía (%)		N (%)	Mortalidad hospitalaria (%)
Ninguno	96 (17,0)	100	-	-	-	-	-
Explante + bypass extraanatómico	230 (40,8)	40	188 (48,7)	18,2-44	9-14	226 (27,5)	31,2
Sustitución in situ	104 (18,4)	47	73 (18,9)	8-13,3	14-26	403 (49,0)*	34,0
- Homoinjertos	-	-	115 (29,8)	12-50	10-25,9	-	-
No reparación arterial/local	96 (17,0)	80	-	-	-	25 (3,0)	28,0**
Endovascular	-	-	10 (2,6)	-	-	98 (11,3)***	7,1
Miscelánea	38 (6,7)	63	-	-	-	55 (6,7)	41,3
- Cierre primario del defecto arterial	-	-	-	-	-	16 (1,9)	62,5
Total	564 (100)	57	386 (100)	8-50	2,1-26	823 (100)	30,7

(1) Vascular Graf Infections (468 casos).

(2) Cir Esp 2007 (386 casos en 58 publicaciones).

(3) Eur J Vasc Endovasc Surg 2016 (823 casos en 216 publicaciones).

* Incluye homoinjertos (166), prótesis normal (42), e impregnadas en plata o rifampicina (160), injerto de pericardio bovino (1), y venoso (34).

** Fundamentalmente eran fistulas paraprotésicas (erosiones).

*** Incluye dos tiempos: endoprótesis y posterior reparación abierta (n = 13).



Discusión

En 1949, el ingeniero estadounidense Edward A. Murphy formulo su famosa ley: "Si algo puede salir mal, saldrá mal". En este sentido, nuestro caso es paradigmático. La historia natural de las FAE es la muerte por hemorragia y/o sepsis, a menos que un rápido, correcto y exacto diagnóstico asociado a un adecuado tratamiento quirúrgico eviten el fatal desenlace. Nuestro caso no cumplió esta secuencia.

Los síntomas habituales de FAE son la hematemesis, melena y dolor abdominal ⁽¹⁰⁾. El sangrado inicialmente suele ser escaso y a menudo intermitente, pero con el tiempo conduce a un sangrado grave y shock hemorrágico ⁽⁴⁾. Algunos pacientes antes de la hemorragia, presentan fiebre, fatiga, malestar o pérdida de peso, que suelen pasar desapercibidos ⁽¹⁻²⁾. En nuestro caso, no existieron pródromos, pero si hemorragia centinela (*Herald bleed*), que no fue bien interpretada.

El síndrome de HDA, está producido por muchas causas (úlceras gástro-duodenal, síndrome de Mallory-Weiss, varices esofágicas, etc) siendo la FAE una causa excepcional; este hecho suele retrasar el diagnóstico salvo un alto índice de sospecha. Por ello, una primera enseñanza: "Todo paciente con antecedente de cirugía de la aorta, que presente una HDA tiene una FAE mientras no se demuestre lo contrario".

Una sospecha se debe confirmar/excluir, si bien ningún método complementario ha demostrado absoluta eficacia ⁽¹¹⁾. El TAC con contraste intravenoso está considerada la prueba de elección, con una sensibilidad del 50-94% y especificidad del 85-100% ⁽⁴⁾; se deben buscar signos de gas alrededor de la prótesis, engrosamiento de su pared, hematoma periaortico o incluso contraste dentro de la luz gastrointestinal ⁽²⁾. En nuestro caso, no se observo ninguno de los signos radiológicos referidos (Figura 1).

Para otros, la endoscopia es la principal prueba diagnóstica, al poder demostrar la fístula y descartar otras causas de HDA ⁽³⁾. Aunque muchas veces no identifica el lugar del sangrado ⁽⁴⁾, en otras visualiza la prótesis ^(3,14-16). Ambas situaciones las hemos vivido en nuestro caso (dos endoscopias negativas y la última visualizando la prótesis). Otras pruebas, gammagrafías o arteriografías, ocupan un lugar secundario.

Con los datos diagnósticos iniciales (ausencia de sospecha, un TAC y dos endoscopias negativas) podemos decir que se retrasó el diagnóstico de FAE. Sin embargo, ello no condiciono la cirugía (indicación y momento), dado que esta se realizó con el paciente estable. De hecho, el paciente nunca presento una HDA grave probablemente porque no existió una verdadera comunicación con la aorta, siendo más bien una erosión y el sangrado seguramente procedía de la pared duodenal ulcerada; caso contrario el paciente no habría llegado vivo a la



cirugía. Otro aspecto diagnóstico negativo, fue el peligro que supuso realizar una biopsia “a ciegas” en la segunda endoscopia.

Las FAV son una urgencia quirúrgica. La mortalidad de las FAE secundarias sin cirugía es prácticamente del 100% y con cirugía alrededor del 50% ⁽¹⁻²⁾. Se han descrito tasas de mortalidad precoz entre el 8-50% y tardías entre 2-26% ⁽¹¹⁾, y más concretamente una mortalidad hospitalaria global (incluyendo todas las técnicas) del 30,7% ⁽¹²⁾. Las diferentes cifras de mortalidad dependen fundamentalmente del grado de hemorragia (que condiciona la urgencia) y la contaminación bacteriana (que condiciona el tipo de cirugía y su revascularización).

La laparotomía ayuda al diagnóstico y permite la toma de decisiones. Las fases quirúrgicas se resumen en: 1) control de la aorta, 2) eliminación de la fístula; 3) cirugía digestiva; y 4) cirugía vascular.

Sobre la fase digestiva, en una publicación sobre 21 FAE (una primaria), la reparación intestinal fue elegida caso por caso por el cirujano general. Esta consistió en reparación primaria simple (48%), resección con anastomosis primaria (38%) y parches con pleura u epiplón en casos individuales. Seis pacientes (32%) fallecieron en los 90 días; los pacientes que requirieron resección intestinal murieron más frecuentemente (66%) que aquellos con reparación simple (10%) ⁽⁶⁾. Por tanto, el método de reparación intestinal se relaciona también con la supervivencia en estos pacientes.

Con respecto a la reparación vascular, existen más datos. El tratamiento curativo consiste en retirar la prótesis problema y revascularizar con un nuevo injerto/prótesis por vía extraanatómica o “in situ”, asociada a una terapia antibiótica prolongada. Conjuntamente existen planteamientos menos agresivos.

La cirugía clásica (estándar) consiste en la ligadura de la aorta, retirada de la prótesis y revascularización mediante un bypass axilo-bifemoral, en uno o dos tiempos (antes de la retirada de la prótesis problema). Esta técnica tiene una elevada tasa de mortalidad operatoria (25-90%) y amputación de extremidades inferiores (5-25%) ⁽³⁻⁴⁾.

Para mejorar esos resultados, se propuso la revascularización “in situ” con un injerto (homoinjerto arterial o autoinjerto venoso) o prótesis (convencional o impregnada) una vez retirada la prótesis problema. Este proceder redujo la mortalidad operatoria (27-30%) ⁽⁴⁾. Para Kakkos y cols, sobre 403 casos, alcanzo el 49% ⁽¹²⁾.

Mientras la primera opción se realiza cuando el campo operatorio está infectado, la sustitución “in situ” se reserva para situaciones con infección circunscrita, como las erosiones enteroprotésicas, estando contraindicada en septicemias, supuración y necrosis periaórtica



difusa, así como en infecciones por bacterias gramnegativas ⁽¹¹⁾. Nuestro paciente presentó una bacteriemia (*E.coli*) tratada con amoxicilina-clavulanico, 19 días antes de la cirugía.

La revisión de Martínez y cols ⁽¹¹⁾ (Tabla 3) informan que incluso tras una intervención exitosa persiste una elevada morbilidad (9% de amputación de miembros inferiores, 22% de reinfección protésica y 20% de trombosis en los casos de bypass extraanatómico). Asimismo, cuando se realiza un bypass extraanatómico, tras la retirada de la prótesis y ligadura de la aorta, existe un riesgo de sangrado a través del muñón aórtico (6-50%), habiéndose descrito una mortalidad relacionada con esta complicación de hasta el 89%.

Posteriormente apareció el tratamiento endovascular (que permite recubrir la aorta con una endoprótesis y así bloquear la FAE). Este proceder tiene menor morbilidad y mortalidad y se prefiere en situaciones de alto riesgo, siendo de elección para pacientes con shock hemorrágico debido a su efecto hemostático. Sin embargo, no elimina el riesgo de infección o reinfección en pacientes con FAE secundaria, a pesar de la administración de antibióticos a largo plazo. Por lo tanto, en los casos donde sea posible, la endoprótesis debe considerarse un procedimiento puente a una posterior cirugía abierta ^(4,14).

Antoniou y cols ⁽¹⁷⁾ recopilaron 41 FAE tratadas mediante endoprótesis (33 informes) y un seguimiento medio de 13 meses. La infección persistente/recurrente o hemorragia recurrente apareció en el 44%. Las FAE secundarias, en comparación con las primarias, tenían un riesgo casi tres veces mayor de infección persistente/recurrente. La sepsis preoperatoria era un factor de mal pronóstico. La infección persistente/recurrente post-tratamiento se asoció a peor supervivencia.

Un estudio multicéntrico que comparó la reparación abierta frente a la endovascular mostró una morbilidad general más baja en pacientes endovasculares (25% frente a 77%), pero la infección secundaria persistió debido a la eliminación incompleta de la prótesis infectada ⁽²⁾.

La revisión de Kakkos y cols ⁽¹²⁾, al incluir un gran número de pacientes (n = 823) les permitió realizar comparaciones entre las técnicas abiertas y endovasculares en el tratamiento de las FAE. La cirugía abierta tuvo una mayor mortalidad hospitalaria (33,9%), respecto los métodos endovasculares (7,1%), pero que se reducía durante el seguimiento a largo plazo. Complementariamente un enfoque endovascular por etapas, en candidatos adecuados logró los mejores resultados; así la endoprótesis seguida de reparación in situ, con injertos venosos, mejoran los resultados a largo plazo, si bien los casos publicados superan escasamente la docena.



Así las cosas, disponemos de dos tratamientos vasculares curativos (revascularización extraanatómica o remplazo "in situ") y otro no curativo (endoprótesis aórtica, sin explantar la prótesis original) que puede terminar siendo curativo si se contempla una segunda etapa; mientras los primeros presentan elevada morbilidad y mortalidad, el segundo no libera al paciente de la posible recidiva y el tercero (etapas) solo es posible en casos muy seleccionados (y con una experiencia muy limitada).

Por ello, hay autores que realizaron un planteamiento quirúrgico similar al nuestro: sutura simple del duodeno una vez que la prótesis es separada del duodeno. Para proteger el intestino, se inserta un fragmento pediculado del epiplón mayor entre duodeno y prótesis. La prótesis se mantiene en su lugar al no existir signos locales o sistémicos de infección, ni de hemorragia. Así trataron Geraci y cols ⁽³⁾ un paciente cuyo postoperatorio y seguimiento a seis meses fue normal.

Kavanagh y cols ⁽¹⁸⁾ sobre 21 FAE (7 primarias) y una supervivencia global del 38%, emplearon la reparación primaria en cuatro pacientes con una mortalidad del 25%.

Kakkos y cols ⁽¹²⁾, en la revisión varias veces referida, encontraron 18 casos donde no se realizó reparación arterial, principalmente eran fístulas paraprotésica o erosiones; la prótesis original no fue eliminada y esta se trató mediante omentoplastia. Un análisis de los resultados mostro: a) que esta reparación primaria de FAE es menos duradera que otras técnicas de cirugía abierta, con una tasa de recurrencia del 100% a los 2 años; b) que la tasa de supervivencia a 5 años fue similar a otras técnicas abiertas y finalmente c) que la tasa libre de mortalidad a 3 años se situó en el 45% de los casos.

Los múltiples motivos para nuestra decisión fueron:

1) Descartamos el planteamiento endovascular. Un análisis preoperatorio mostró una anatomía lesional no favorable.

2) Nuestro planteamiento inicial era explantar la prótesis y decidir intraoperatoriamente el tipo de revascularización (bypass axilo-bifemoral o prótesis impregnada en plata "in situ"), pero cambiamos a una actitud conservadora por:

- No FAE propiamente dicha, sino erosión protésica.
- No sangrado en cavidad peritoneal o retroperitoneal.
- No contaminación macroscópica. No exudado, ni pus local.
- No infección sistémica.
- Edad y comorbilidad del paciente.



- Situación hospitalaria (Covid-19). En la fecha de la cirugía, el registro de la Junta de Castilla y León, informaba que en nuestro hospital había 44 pacientes ingresados en planta y 4 en UCI.

Sin embargo, una mirada retrospectiva demuestra que muchas decisiones fueron negativas; aunque sea anecdótico, incluso las fotos realizadas durante la cirugía salieron desenfocadas. Existen ocasiones, como la vivida, donde la Ley de Murphy o sus corolarios prevalecen: "Si existe la posibilidad de que varias cosas salgan mal, la que cause más perjuicios será la que salga mal". Así cuando parecía que ya nada podía salir peor, las cosas empeoraban; así la hemorragia de casi 3 litros que sufrió el paciente y que obligo a re-operar seguramente motivó o facilitó su infarto cerebral. Conjuntamente esa hemorragia indujo una respuesta inflamatoria sistémica que se multiplico por el coronavirus y contribuyó al fallecimiento. Verdaderamente parece aplicable la maldición de Marlowe: "La frustración de perder un paciente dura más que la alegría de salvar a uno" ⁽¹⁹⁾.

Pero no queremos escondernos tras estas inevitables y cínicas leyes que denotan una actitud pesimista o de resignación. Tampoco manifestar un espíritu defensivo, sino propiciar un aprendizaje positivo; parafraseado a otros "una crisis consiste en no poder decir que olvidemos el tema" (Feguson) y sobre todo "que el buen juicio proviene de las malas experiencias" (Higdon) ⁽¹⁹⁾.

Afortunadamente en la literatura hay datos que indican que muchas FAE secundarias podrían ser prevenibles. Aunque el exacto mecanismo patogénico es desconocido, los factores mecánicos e infecciosos parecen ser las causas más frecuentes de esta complicación postquirúrgica. Conjuntamente, las FAE aparecen con mayor frecuencia después de procedimientos urgentes y reoperaciones ⁽¹⁴⁾. Por ello, no debemos olvidar la importancia de practicar una cirugía particularmente delicada y una profilaxis/terapia antibiótica en los casos indicados ⁽³⁾.

Finalmente referir como desde hace años llaman nuestra atención aquellas publicaciones que incluyen en su título la palabra "pesadilla" ⁽²⁰⁾. Cuando lees esos artículos te compadeces o haces piña con los autores sobre su desafortunado resultado, o mejor como dice Butman ⁽²¹⁾ "elogias a sus autores por compartir con los lectores un día salvaje y desafortunado". Como refiere Blunt ⁽¹⁾: "Los cirujanos vasculares honestos comenten errores, los cirujanos inteligentes aprenden de ellos"; nos gustaría pertenecer a ese grupo.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de interés



Financiación

Los autores declaran no tener financiación

Agradecimientos

A María Jesús y Elena, del servicio de bibliotecas de la Facultad de Medicina de la Universidad de Salamanca, por su eficacia y gran ayuda en la búsqueda de documentación para la realización de este trabajo.

Referencias

1. Blunt TJ. Vascular Graft Infections. Futura Publishing Company, Inc. Armonk, New York, 1994.
2. Simó Alari F, Molina González E, Gutierrez I, Ahamdanech-Idrissi A. Secondary aortoduodenal fistula and the unrecognized herald bleed. *BMJ Case Rep* 2017;bcr2017220186.
3. Geraci G, Pisello F, Volsi FL, Facella T, Platia L, Modica G, et al. Secondary aortoduodenal fistula. *World J Gastroenterol* 2008;14(3):484-6.
4. Makimoto S, Takami T, Shintani H, Kataoka N, Yamaguchi T, Tomita M, et al. Cases of two patients with aortoduodenal fistula who underwent emergency operation. *Int J Surg Case Rep* 2020;69:87-91.
5. Tejedor-Tejada J, Núñez Rodríguez H, Domingo L. Secondary aortoduodenal fistula with the presentation of gastrointestinal bleeding: a case report. *Rev Esp Enferm Dig* 2019;111(7):575.
6. Cendan JC, Thomas JB 4th, Seeger JM. Twenty-one cases of aortoenteric fistula: lessons for the general surgeon. *Am Surg* 2004;70(7):583-7.
7. Bunt TJ. Synthetic vascular graft infections. II. Graft-enteric erosions and graft-enteric fistulas. *Surgery* 1983;94(1):1-9.
8. Bergqvist D, Björck M, Nyman R. Secondary aortoenteric fistula after endovascular aortic interventions: A systematic literature review. *J Vasc Interv Radiol* 2008;19(2 Pt 1):163-5.
9. Gomez-Alonso A, Lozano F, Cuadrado F, Almazan A. Traumatic aorto-esophageal fistula. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1984;87(1):148-9.



10. Lozano FS, Muñoz-Bellvis L, San Norberto E, García-Plaza A, González-Porras JR. Primary aorto-duodenal fistula: New case reports and a review of the literature. *J Gastrointest Surg* 2008;12(9):1561-5.
11. Martínez Aguilar E, Acín F, March JR, Medina FJ, de Haro J, Flórez A. Reparación de las fístulas aortoentéricas secundarias. Revisión sistemática. *Cir Esp* 2007;82(6):321-7.
12. Kakkos SK, Bicknell CD, Tsolakis IA, Bergqvist D; Hellenic Co-operative Group on Aortic Surgery. Editor's Choice - Management of secondary aorto-enteric and other abdominal arterio-enteric fistulas: A review and pooled data analysis. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2016;52(6):770-86.
13. Feo CF, Ginesu GC, Pinna A, Galotti F, Paliogiannis P, Fancellu A, et al. In situ reconstruction with autologous graft in the treatment of secondary aortoenteric fistula: A retrospective case series. *Ann Med Surg (Lond)* 2019;49:53-56.
14. Hansen BA, Amundsen S, Reikvam H, Wendelbo O, Pedersen G. Non-curative surgery for aortoenteric fistula. *J Surg Case Reports* 2017;8:1-3.
15. Khan A, Ahmad E, Javaid S, Sankari MR. An Insidious gastrointestinal bleeding from secondary aortoduodenal fistula leading to septic shock. *Case Rep Gastrointest Med* 2019;6:261526.
16. Riddle PJ Jr, Shetty A, Brock AS. Confirmatory visualization of an aorto-enteric fistula with esophagogastroduodenoscopy. *Clin Gastroenterol Hepatol* 2019;17(13):e157.
17. Antoniou GA, Koutsias S, Antoniou SA, Georgiakakis A, Lazarides MK, Giannoukas AD. Outcome after endovascular stent graft repair of aortoenteric fistula: A systematic review. *J Vasc Surg* 2009;49(3):782-9.
18. Kavanagh DO, Dowdall JF, Younis F, Sheehan S, Mehigan D, Barry MC. Aorto-enteric fistula: changing management strategies. *Ir J Med Sci* 2006;175(1):40-4.
19. Matthews R. Tumbling toast, Murphy's Law and the fundamental constants. *Eur J Phys* 1995;16(4):172-6.
20. Hammon JW. Aortic nightmares: can we sleep better?. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2003;125(6):1200-1.
21. Butman SM. Murphy's Law and Us. *Catheter Cardiovasc Interv* 2011;78(2):244-5.