# Pseudoaneurisma de la arteria axilar en un lactante con hemofilia. Caso reporte

Tte. Cor. M.C. René Francisco Candia de la Rosa,\* M.C. Raúl Candia García,\*\*
M.I. Naara Mancilla Animas\*\*\*

Hospital Militar Regional de Puebla, Pue.

#### RESUMEN

Los pseudoaneurismas de la arteria axilar son raros y aún más raros en los lactantes, la mayoría se deben como complicaciones a procedimientos de punciones percutáneas de las arterias, un procedimiento generalmente no recomendado en esos niños tan pequeños y menos aun en niños con discrasias sanguíneas como la hemofilia. Nosotros reportamos un caso de pseudoaneurisma de la arteria axilar izquierda en un lactante menor de 14 meses con hemofilia tipo A. revisamos la literatura y hacemos alguna consideraciones de importancia.

Palabras clave: pseudoaneurisma, lactante, choque hipovolémico, hemofilia.

## Introducción

Los pseudoaneurismas de la arteria axilar son raros y aún más raros en los lactantes, la mayoría se deben a complicaciones de procedimientos realizados por punciones percutáneas en las arterias. Los pseudoaneurismas son también llamados aneurismas falsos, ya que la ruptura de la pared del vaso ocasiona un sangrado continuo dentro del tejido que rodea al vaso sanguíneo formando un saco pulsátil, a diferencia de los aneurismas, que son sacos que comprometen las tres capas de la arteria. Generalmente los pseudoaneurismas se forman por el daño local de la arteria causado por cateterizaciones terapéuticas o diagnósticas en niños y adultos, en los lactantes con la incorporación de tratamientos quirúrgicos progresivamente más agresivos para la correc-

Pseudoaneurysm axilar artery in a nurling with hemophilia

### **ABSTRACT**

The axillary artery pseudoaneurysm are rare and but even rare in the nurling, the majority must to complications in arteries percutaneous punctions procedures, this procedure generally is not recommended in those so small children and less even in children with sanguineous discrasias like hemofilia. We reported a case of a male infant of 14 months of age with pseudoaneurism the left axillary artery with hemophilia A. References are reviewed in world wide and we made some considerations about hemophilia and his complications.

**Key words:** Pseudoaneurysm, axillar artery, hemophilia A, infant, hipovolemyc shock.

ción de malformaciones congénitas cardiacas, los accesos arteriales percutáneos son casi una rutina en cirugía neonatal, y debido generalmente a iatrogénicas por múltiples punciones arteriales y venosas cuando ameritan monitorización invasiva en la Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales.<sup>1-4</sup>

La hemofilia es la deficiencia congénita de los factores de coagulación VII, IX y XI en hemofilia tipo A, B y C, respectivamente, interviniendo específicamente en la activación intrínseca de la protrombina, se transmite como un rasgo recesivo ligado al cromosoma X, por eso las mujeres transmiten la enfermedad, pero no la padecen, en algunas portadoras, por el proceso conocido como "lionización" sólo se expresa uno de los cromosomas X, por lo que dependiendo si se expresa el cromosoma X sano, será productora del factor, mientras que si se expresa el cromosoma afectado, no

Correspondencia:

Tte. Cor. MC. René Francisco Candia de la Rosa

Reforma 916, Despacho 111. Colonia Centro. Puebla, Puebla. Tel.: (0122) 2232-9345. Cel.: (01 22) 2292-9552.

Correo electrónico: renefcocandia@hotmail. com

Recibido: Septiembre 4, 2004. Aceptado: Febrero 23, 2005.

<sup>\*</sup> Cirujano vascular, Jefe de Asistencia Externa y 1er. vocal del Comité de Calidad del Hospital Militar Regional de Puebla. \*\*Médico radiólogo, Clínica Médica Quirúrgica Nuestra Señora de Lourdes, Puebla. \*\*\*Médico interno del Hospital Militar Regional de Puebla.

lo producirá, de ahí que algunas mujeres presenten clínicamente hemorragia. <sup>5,6</sup>

La hemofilia se clasifica en relación con el nivel del factor plasmático en:

- 1. Grave: menor de 1% de la normalidad del factor afectado y clínicamente se manifiesta en hemorragias espontáneas frecuentes que requieren terapia sustitutiva.
- Moderada: de 1 a 5% de la normalidad del factor afectado, clínicamente se manifiestan hemorragias secundarias a traumatismos y hemartrosis espontáneas esporádicas.
- 3. Leve: de 6 a 40% de la normalidad del factor afectado, se manifiesta con hemorragias a traumatismos y hemartrosis espontáneas raras.<sup>5,6</sup>

### Caso clínico

Paciente del sexo masculino de 14 meses de edad, producto de la segunda gesta de término, nacido por parto vaginal, sin complicaciones transparto, pesando 2,700 g. Que tiene el antecedente de haber sufrido traumatismo craneoencefálico causado por caída de su andadera, que ameritó hospitalización en la Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales de un hospital pediátrico de Puebla por presentar convulsiones diagnosticándole hemorragia subdural laminar. Se intubó orotraqueal y se monitorizó invasivamente la presión arterial con un catéter en la arteria axilar. Los familiares refieren que en esa ocasión presentó sangrado profuso, por lo que requirió múltiples transfusiones, complicándose con neumonía intrahospitalaria, infección de vías urinarias y tumoración pulsátil a nivel axilar izquierdo en sitio de punción arterial, por lo que fue necesario hospitalizarlo durante 20 días, al retirar catéter de arteria axilar, presenta nuevamente sangrado profuso, por lo que se trasfunde una vez más, se informa a los padres que la tumoración se resuelve sólo con compresión, por lo que es dado de alta; al tercer día presenta sangrado en el sitio de punción, por lo que acuden a Consulta Externa de Pediatría, el sangrado cede únicamente con compresión, se le informa nuevamente a la madre que sólo con compresión mejorará la tumoración pulsátil y el sangrado, se presenta un nuevo episodio de sangrado activo de color rojo rutilante y pulsátil que no cede con la presión, acudiendo a familiar médico, quien después de realizar compresión solicita atención por médico vascular, encontrándose un niño pálido, lloroso, procediendo a canalizarlo por dos vías y resucitarlo con cargas de Hartman. En la exploración física se encuentra un lactante menor pálido xxxx con frecuencia cardiaca de 150 latidos por minuto, respiración de 30 por minuto, con tumoración pulsátil de 8 x 8 cm en axila izquierda con una costra melisérica en borde superior sangrando (Figura 1). Se realiza compresión para controlar el sangrado, se solicitan cuatro paquetes de 10 cc de paquete globular, cuatro paquetes de plasma fresco y estudios de laboratorio: biometría hemática con 5 de hemoglobina y 29 de hematócrito, química sanguínea normal, tiempos de tendencia hemorrágica, tiempo de tromboplastina de 37 segundos y tiempo de protrombina de 12 segundos, se procede a hospitalizar al niño y se transfunden las unidades solicitadas, se realiza ultrasonido y se aprecia saco de 8 x 10 cm pulsátil dependiente de arteria axilar izquierda, se procede a realizar en tres ocasiones con presión del cuello mediante el traductor del ultrasonido sin lograr detener el flujo sanguíneo, se interviene quirúrgicamente al siguiente día de haber estabilizado hemodinámicamente al lactante menor y sin sangrado se procede a resecar el pseudoaneurisma apreciándose una tumoración pulsátil de 8 x 8 cm, que comunicaba a piel, se procede a cerrar el cuello con prolene 0000 con puntos de matras, resecándose la tumoración (Figuras 2 y 3), se revisa hemostasia y se aprecia mínimo sangrado en capa, se coloca drenoback de 1/8 dándose por terminada la cirugía, nuevamente se transfunden dos paquetes globulares y dos de plasma con hemoglobina de control de 12 gramos. Al tercer día no se aprecia sangrado alguno y escaso hematoma en la herida quirúrgica, por lo que se da de alta al cuarto día sin complicaciones, llevándose el drenoback, citándolo al octavo día para revisar herida quirúrgica y retirar el drenoback, encontrándose un leve hematoma en herida quirúrgica y obstrucción del drenoback, por lo que se retira, dejando los pun-





Figura 1 A y B. Lactante menor con tumoración pulsátil en hueco axilar izquierdo con costra melisérica.





Figuras 2 A y B. Resección quirúrgica del pseudoaneurisma dependiente de la arteria axilar.

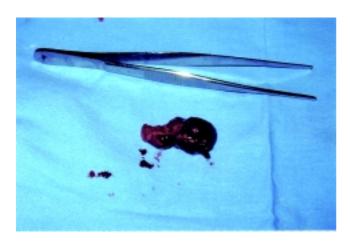


Figura 3. Pieza quirúrgica resecada donde se aprecia el sitio de fistulización a piel.



**Figura 4.** Drenaje tipo Penrose al tercer día de la reintervención quirúrgica mostrando todavía sangrado.

tos de piel, se cita nuevamente en tres días para retiros de puntos, al segundo y décimo día de postoperado los familiares acuden al hospital con el lactante pálido, con sangrado profuso y un gran hematoma en la herida quirúrgica, una frecuencia cardiaca de 160 latidos por minuto, somnoliento, poco irritable, se intenta canalizar sin éxito, se realizan dos venodisecciones de vena safena interna a nivel de ambos tobillos, y se reanima con cristaloides más cuatro paquetes globulares y cuatro paquetes de plasma, se procede a reexplorar herida quirúrgica encontrándose gran hematoma con sangrado profuso en capa, el sitio de cierre de la arteria sin sangrado, se procede a coagular con electrocauterio, colocación de Gelfoan, y con colocación de drenaje tipo Penrose por herida quirúrgica (*Figura 4*), cerrándose por planos y aplicándose vendaje compresivo.

Se sospecha discrasia sanguínea y se solicita determinación del factor VIII y IX de la coagulación, tiempo tromboplastina parcial y protrombina, reportándose factor IX normal, factor VIII con sólo 5% de lo normal y tiempo de tromboplastina de 60 segundos, se corrobora el diagnóstico de hemofilia tipo a moderada y se inicia tratamiento de plasma fresco cada ocho horas, se solicita interconsulta a hematológica pediátrica, quien confirma el diagnóstico solicitando administración del factor VIII recombinado tres veces al día por el término de siete días, al cuarto día se administra el factor VIII recombinado con una mejoría dramática deteniéndose el sangrado, se procede a trasladar al niño al IMSS por petición de los padres, que no contaban con recursos para mantener el tratamiento antes propuesto, dándose de alta al séptimo día de postoperado sin sangrado, retirándose Penrose y herida quirúrgica con escaso hematoma, y actualmente con cicatrización adecuada (Figura 5).

#### Discusión

Los pseudoaneurismas en niños son raros, ellos pueden ser causados por infección, inflamación, trauma, procedimientos quirúrgicos y de radiología intervensionista. 1-4.7 Los pseudoaneurismas resultan de la ruptura de la pared de un vaso con extravasación de sangre dentro de los tejidos que rodean la arteria, esto resulta en la formación de una cápsula de tejido fibroso que progresivamente crece debido a la presión arterial. La circulación sanguínea está siendo



Figura 5. Herida quirúrgica cicatrizada totalmente a los tres meses.

contenida por los tejidos circunvecinos que forman una cavidad alrededor del vaso sangrante, formada por las fascias, los mismos trombos, pero no por los componentes de la pared arterial como se observa en los aneurismas verdaderos. 1.2.7

Los pseudoaneurismas generalmente son como resultado de un daño arterial local causado por la cateterización diagnóstica o terapéutica, es menos frecuente que se desarrollen por otros procedimientos como punción arterial o múltiples punciones venosas, por ejemplo, en las líneas arteriales para monitoreo de la presión arterial invasiva o por trauma directo. Estos pseudoaneurismas en niños ocurren en 0.05% después de una cateterización cardiaca y 1.2% en procedimientos más complejos.<sup>3</sup> Sólo muy pocos casos se han reportado en neonatos incluyendo dos casos de pseudoaneurisma aórtico secundario a cateterización umbilical, dos casos de pseudoaneurisma de la arteria braquial por lesión accidental de la arteria por venopunción repetidas.<sup>4</sup>

La cateterización arterial y venosa se ha incrementado en pacientes hospitalizados; en pacientes críticamente enfermos que no se escapan de la colocación una línea arterial o de un catéter de la arteria pulmonar. Millones de catéteres subclavios se colocan cada año para resucitación de líquidos, nutrición parenteral, quimioterapia, hemodiálisis, marcapasos cardiacos, etc. Abordajes más agresivos para enfermedades cardiacas y vasculares han resultado en el crecimiento exponencial de arteriografías periféricas y coronarias, terapia trombolíticas, varios tipos de angioplastias y stents intravasculares, bombas de contrapulsación cardiacas han sido colocadas percutáneamente también con la introducción de vainas y dilatadores grandes por los sitios de punción dejando un orificio con la semejanza de una herida de arma de fuego de calibre pequeño (7 al 12 Fr) y esto deberá no ser sorpresa de que el número de complicaciones iatrogénicas de los accesos arteriales y venosos ha alcanzado proporciones epidémicas. Las lesiones arteriales o venosas iatrogénicas recientemente representan el tipo más común de trauma vascular en muchos hospitales; las lesiones iatrogénicas exceden en todo al trauma vascular de arma de fuego o herida por arma blanca, porque ello puede ocurrir en la mayoría de los hospitales y todo cirujano deberá ser preparado para reconocerlos y manejarlos. Se deberá enfatizar que las iatrogenias vasculares no son menos importantes que un trauma mayor, esas lesiones frecuentemente requieren reparaciones quirúrgicas con los riesgos anestésicos o de transfusión sanguínea, complicaciones de las heridas, mayor estancia hospitalaria y los costos son generalmente dobles para los pacientes, algunos pacientes tienen secuelas a largo plazo después de la lesión vascular, tales complicaciones pueden incluir neuralgias locales, claudicación, pérdida de la extremidad. 1.2,7,8

Los signos clínicos siempre son diagnósticos, ya que después de retirar un catéter arterial, ya sea diagnóstico o de monitoreo, y después de una compresión gentil por el término de 30 minutos, llegará a presentarse una tumoración pulsátil en el sitio de punción, deberá siempre despertar la sospecha de un pseudoaneurisma, esto puede presentarse hasta semanas después de retirado el catéter.4 Como sucedió en nuestro caso, la aparición de una tumoración axilar izquierda pulsátil después de retirar un catéter de la arteria de axilar izquierda con sangrado profuso que ameritó transfusiones sanguíneas múltiples, que no despertó sospecha alguna por los médicos pediatras que lo atendieron primariamente, ya que supusieron era un hematoma. Muchos de los pseudoaneurismas se presentan con síntomas locales como dolor, rápida expansión u obstrucción venosa asociada a masa palpable con trill o soplo audible. 1,2,7

El estudio diagnóstico complementario más específico es el ultrasonido Doppler color que define el tamaño y extensión del pseudoaneurisma, así como la presencia de colecciones alrededor del pseudoaneurisma.<sup>1,2,7,8</sup>

Cuando se requiere valorar con más exactitud la relación anatómica de la arteria que se encuentra involucrada se deberá realizar una arteriografía o en su defecto una angiografía por tomografía para planear la resolución quirúrgica o procedimiento de intervencionismo (stent).<sup>8-12</sup>

Las complicaciones del pseudoaneurisma son como todos los aneurismas, ruptura, trombosis, infección. Los diagnósticos diferenciales incluyen: simple hematoma, edema tisular, trombosis del pseudoaneurisma y linfadenopatía. <sup>1-5</sup>

Como mencionamos en un caso reportado por nosotros de pseudoaneurisma de la arteria femoral poscateterismo cardiaco con el uso de fibrinolíticos, el tratamiento deberá ser, primero, conservador mediante compresión y de preferencia guiado por ultrasonido sobre el cuello del pseudoaneurisma (la comunicación del canal entre la luz del vaso y la cavidad del falso aneurisma) el lugar donde se coloca el transductor es guiado por imagen continua y deberá permanecer por un periodo prolongando observando que no exista flujo dentro del saco. Nosotros intentamos el mismo procedimiento como el caso reportado previamente en un intento al realizar el ultrasonido diagnóstico sin lograr el cierre, en el caso

reportado falló el método conservador por el uso de fibrinolíticos y ahora creemos que no pudimos lograr el cierre en este nuevo caso por la hemofilia que presentaba el paciente y no era diagnosticada.

Las causas que han sido postuladas para no lograrse el cierre de los pseudoaneurismas son:<sup>9,10</sup>

- 1. Infección.
- 2. Discrasia sanguínea.
- 3. Cuello de gran tamaño.
- 4. Uso de fibrinolíticos.

Las causas para decidir una resección con reconstrucción arterial son:

- 1. Agrandamiento progresivo.
- 2. Dolor.
- 3. Ruptura.
- 4. Hemorragia.
- 5. Infección.
- 6. Falla con el tratamiento conservador.

Es importante mencionar que nunca se sospechó en el niño una discrasia sanguínea como causa que originó la formación del pseudoaneurisma y la falla en el cierre con los métodos tradicionales, esto es debido a que la hemofilia es la deficiencia congénita de los factores de coagulación VII, IX y XI en hemofilia tipo A, B y C, respectivamente, interviniendo específicamente en la activación intrínseca de la protrombina, se transmite como un rasgo recesivo ligado al cromosoma X, por eso las mujeres transmiten la enfermedad, pero no la padecen.<sup>5,6</sup> La mamá no tiene antecedentes familiares de hemofilia en tres de sus hermanas con múltiples niños, y ella tiene su primer hijo varón de cuatro años sin tener ningún antecedente de hemorragias postraumáticas algunas. Pero debemos tener muy en cuenta que el desarrollo de inhibidores adquiridos del factor VIII en el periodo de la niñez permanece como una seria y grave complicación que pone en peligro la vida, siendo esto una enfermedad muy rara en personas no hemofílicas, pero puede ser una condición clínicamente importante por su alta mortalidad debido a las grandes hemorragias que ponen en peligro la vida. Los inhibidores adquiridos llamados " hemofilia adquirida" tiene una baja incidencia de uno en un millón de niños anualmente, la mayoría de las veces ocurre en adultos y generalmente se asocia con enfermedades autoinmunes, periodo pospartum, uso de drogas o tumores malignos.<sup>5</sup> En los niños que se considere una posibilidad de presentarla se deberá tener en cuenta factores de riesgo que se han asociado con estos anticuerpos contra el factor VIII siendo éstos:

- 1. Lupus eritematoso.
- 2. Fiebre reumática.
- 3. Artritis reumatoide.

- 4. Tumores.
- Quimioterapia (metrotexato, ciclofosfamida, azatioprima)
- 6. Antibióticos (penicilina, sulfonamidas).
- 7. Esteroides.
- 8. Diabetes mellitus tipo I.<sup>6</sup>

Esto será un reto diagnóstico para los pediatras hematólogos que estudiaran a este paciente.

### **Conclusiones**

En primer lugar debe reducirse al máximo el número de punciones arteriales en niños pequeños y además éstas deberán ser realizadas por el mínimo número de facultativos con el máximo de experiencia. Debe reservarse la docencia en la canalización arterial para pacientes de mayor peso y edad donde la tasa de complicaciones es casi inexistente. Los accesos arteriales deben limitarse a troncos principales. En la extremidad superior debe evitarse a toda costa la canalización o punción de la arteria humeral, sobre todo en su tercio distal, siendo preferible la arteria axilar o en su defecto la cubital o radial previo prueba de Allen que garantice la existencia de permeabilidad de ambas arterias y su circulación colateral. Es de obligado cumplimiento la presión de la arteria durante varios minutos en el lugar de retirada del catéter o punción. No observar esta simple medida es la primera causa de pseudoaneurisma en la edad pediátrica. Deben evitarse en cualquier circunstancia los movimientos laterales de la aguja una vez que se ha traspasado la piel, especialmente en la realización de exámenes de laboratorio convencionales. La causa más frecuente de fístulas arteriovenosas en el niño es la toma de sangre venosa en el codo, intentando buscar las venas basílicas o cefálicas con movimientos circulares o laterales inadvertidos. Ante la sospecha de lesión arterial en forma de pseudoaneurisma, trombosis y fístula arteriovenosa la primera prueba que se debe realizar es el ultrasonido Doppler color que demuestre la permeabilidad arterial o venosa, la dilatación, la comunicación y el tipo de flujo existente, la angiorresonancia a pesar de ser un método no invasivo implica movilizar a un niño de bajo peso y frecuentemente en el postoperatorio de cirugía cardiaca, lo cual dificulta su uso. En los niños con diagnóstico tardío está claramente indicada la resonancia magnética, aunque, al contrario de otra anomalías vasculares, no va evitar la realización de angiografía convencional con fines terapéuticos.

En cualquier paciente niño o adulto después de habérsele realizado un procedimiento de punción arterial para monitorización o cateterismo, se le deberá realizar compresión gentil durante 30 minutos como mínimo, y deberá realizársele revisiones periódicas, ya que hasta dos semanas después puede desarrollarse un pseudoaneurisma.

En los niños con un trauma mínimo y que presenten una hemorragia no esperada deberá sospecharse una discrasia sanguínea hasta no demostrar lo contrario.

## Agradecimiento

A la Mayor Enfer. Fausta Sandre Hernández por el apoyo en la revisión de este artículo.

#### Referencias

- 1. Hallett JW Jr. Iatrogenic complications of arterial and venous catheterizations. Rutherford RB. In: Vascular surgery. 4th ed. Vol. 94. W.B. Saunders Company; 1966, 1259-66.
- 2. Clark ET, Gewertz BL. Pseudoaneurysms. Rutherford RB. Vascular surgery. 4th ed. W.B. Vol. 83. Saunders Company; 1996, 1153-68.
- Schreiber RLD, Golman LSG. Brachial artery pseudoaneurismysm in a premature infant. Case report. Arch Dis Fetal Neonatal 2003; 88: 152-3.
- 4. Lopez GJC, Encinas JL, Luis A, Ros Z, Diaz M. Traumatismos arteriales en el primer año de vida. An Pediatric (Barc) 2003; 59: 290-3.
- 5. Uranga M. Alteraciones de la coagulación. Bol S Vasco Nav Pediatr 2002; 36: 72-4.

- 6. Kavakli K, Nisli G, Aydinok Y, Centigul N, Yilmaz D, Kavakli T. Acquired hemophilia in pediatric population. URK J Haematol 2002; 19(2): 199-202.
- 7. Candia RF, Candia GR, Urza M, Pseudoaneurisma de la arteria femoral después de cateterización cardiaca. Rev San Mil Mex 2000; 54(5): 244-8.
- 8. Liau CS, Ho FM, Chen MF, Lee YT. Treament of iatrogenic femoral artery pseudoaneurysm with percutaneous thrombin injection. J Vasc Surg 1997; 26: 18-23.
- 9. Cox GS, Young JR, Gray BR, Gruubb MW, Hertzer NR. Postcetheterization pseudoaneurysms: results of treatment in one hundred cases. J Vasc Surg 1994; 19: 683-6.
- 10. Elford J, Burrell C, Roobottom C. Ultrasound guided percutaneous thrombin injection for the treatment of iatrogenic pseudoaneurysms. Heart 1999; 82: 526-7.
- 11. Yetkin U, Gurbuz A. Post-traumatic pseudoaneurysm of the brachial artery and its surgical treatment. Tex Heart Inst J 2003; 30: 293-7.
- 12. Donatre CE. Endovascular treatment of traumatic arteriovenous fistulas and pseudoaneurysms and of arterial oclusive disease. White RA, Thomas J. Fogarty in peripheral endovascular interventions. 2nd ed. Vol. 24. Springer-Verlang, New York: 1999, 371-81.