

REPORTE DE CASO

Pseudoaneurisma micótico por embolismo séptico en paciente pediátrico con leucemia linfoblástica aguda

Mycotic aneurism for septic embolism in a pediatric patient with acute lymphoblastic leukemia

Amalia Ojeda^a, Juliana Jiménez^b, Adalberto Gómez^c, Rubén Montoya^{d,e}, Roy Sanguino^f

^a Residente radiología, Facultad de Medicina, Universidad Militar Nueva Granada, Bogotá, D. C., Colombia

^b Residente radiología, Facultad de Medicina, Pontificia Universidad Javeriana, Bogotá, D. C., Colombia

^c Residente radiología, Facultad de Medicina, Universidad Nacional, Bogotá, D. C., Colombia

^d Servicio de Radiología, Fundación Hospital Pediátrico la Misericordia, Bogotá, D. C., Colombia

^e Facultad de Medicina, Universidad Nacional de Colombia, Bogotá, D. C., Colombia

^f Cardiología pediátrica, Fundación Hospital Pediátrico la Misericordia, Bogotá, D. C., Colombia

Autor para correspondencia: Amalia Ojeda Correo electrónico: ameliog.8@gmail.com

Fecha de sometimiento: 21/12/2018 Fecha de aprobación: 26/02/2019

Disponible en Internet el 06 de diciembre de 2019

PALABRAS CLAVE:

Aneurisma falso;
Aneurisma infectado;
Aneurisma ilíaco;
Aneurisma roto

Resumen

Los aneurismas pediátricos son raros y pueden ser causados por infección al dañar la pared arterial formando una saculación ciega contigua a su lumen denominada pseudoaneurisma micótico. La mayoría de los casos reportados son de pacientes ancianos con comorbilidades y los agentes causantes más frecuentes son *Staphylococcus spp*, *Salmonella spp*, *Streptococcus spp* y raramente hongos.

Se presenta el caso de un niño de 3 años con: diagnóstico reciente de leucemia linfoblástica aguda de precursores B en remisión; alto riesgo de recaída por tratamiento incompleto y antecedente de bacteremia por *Staphylococcus epidermidis* y fungemia por *Candida tropicalis*; vegetaciones cardíacas que hacen embolismo a hígado, bazo, pulmón y cerebro, y pseudoaneurisma micótico parcialmente trombosado de la arteria ilíaca común y externa. El diagnóstico temprano de esta entidad es de vital importancia por el riesgo de ruptura y el manejo quirúrgico dependerá de la localización, el tamaño y las complicaciones asociadas.

KEYWORDS:

Aneurysm, False
Aneurysm, Infected
Iliac Aneurysm
Aneurysm, Ruptured

Abstract

Pediatric aneurysms are rare and can be caused for damaging of the arterial wall secondary to an infection, forming a blind sacculation contiguous to its lumen called mycotic pseudoaneurysm. The majority of reported cases are from elderly patients with comorbidities. The most frequent involucro microorganisms are *Staphylococcus spp*, *Salmonella spp*, *Streptococcus spp* and rarely fungi.

We present the case of a 3-year-old boy, with a recent diagnosis of acute lymphoblastic leukemia of B precursors in remission, with a high risk of relapse due to incomplete treatment and a history of bacteremia due to *Staphylococcus epidermidis* and fungemia due to *Candida tropicalis*; with cardiac vegetations that produce liver, spleen, lung and brain embolism, in whom a partially thrombosed mycotic pseudoaneurysm of the common and external iliac artery is found. The early diagnosis of this entity is of vital importance because of the risk of rupture. Surgical management will depend on the

location, size and associated complications.

Introducción

Los aneurismas pediátricos son raros y son causados por infección, trauma, enfermedades de tejido conectivo, vasculitis o idiopática (1). Los secundarios a infección pueden dañar la pared arterial formando una saculación ciega continua a su lumen denominada pseudoaneurisma micótico (2-4).

En 1885, William Osler usó por primera vez el término “pseudoaneurisma micótico” en un caso asociado a vegetaciones de la válvula aórtica en un paciente de 30 años; hoy en día, a pesar de que “micótico” significa literalmente “fúngico”, se sigue usando este término sin tener en cuenta el microorganismo causante (2,3,5). Las bacterias más frecuentemente asociadas son: *Staphylococcus spp*, *Salmonella spp* y *Streptococcus spp*; solamente el 2% de los agentes infecciosos son hongos, entre esos se encuentran *Aspergillus spp* y *Candida albicans* (3,5).

En la literatura se encuentran pocos casos de pseudoaneurismas micóticos reportados y son aún más raros en la población pediátrica, lo que hace difícil determinar exactamente la incidencia, las causas, la historia natural y el pronóstico de estos aneurismas (1). La prevalencia aproximada de los pseudoaneurismas micóticos es de 0,7% a 1% de todos los aneurismas tratados quirúrgicamente (2). El radiólogo juega un importante papel para el diagnóstico, la localización, la caracterización y la identificación de complicaciones (2). La primera línea de diagnóstico es la angiografía por tomografía multidetector y su diagnóstico temprano es importante para realizar un tratamiento rápido y evitar complicaciones, como la ruptura (2,4,6).

Descripción del caso

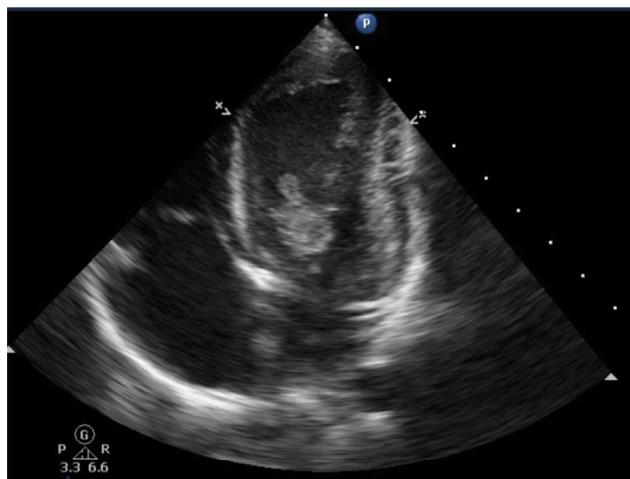


Figura 1. Ecocardiograma transtorácico (ETT) febrero/2018, plano de 4 cámaras apical. Masa ecogénica de densidad heterogénea, bordes irregulares, con masas satélites más pequeñas en el aparato subvalvular mitral. Vegetaciones. Unidad de Cardiología-Fundación Hospital Misericordia.

Paciente hombre de 3 años con leucemia linfoblástica aguda (LLA) de precursores B riesgo intermedio diagnosticada en septiembre del 2017, que en septiembre recibió protocolo de inducción y posteriormente protocolo de consolidación ALLIC 2009 (Protocolo IB), desde octubre hasta noviembre del 2017. En el momento del diagnóstico se demostró hepatomegalia en la tomografía de abdomen con contraste, sin lesiones focales ni otros hallazgos anormales y falla cardiaca por cor anémico sin presencia de vegetaciones en el ecocardiograma.

Terminado el protocolo IB de quimioterapia, se encuentra recaída intratratamiento de alto riesgo en la citometría de flujo de control, por lo que se inicia tratamiento intratecal triple HR. En diciembre 2017 y enero del 2018 recibió quimioterapia HR2 y HR3.

El paciente requirió hospitalización prolongada por neutropenia febril, colitis neutropénica e infección de vías urinarias bajas por *Pseudomonas aeruginosa*. En esta hospitalización se reportó bacteremia por *Staphylococcus epidermidis*.

A finales de febrero del 2018 requirió su primer catéter venoso central (yugular interno derecho). Posteriormente presentó fiebre prolongada y crecimiento de *Candida tropicalis* en los hemocultivos tomados por este catéter asociado a presencia de vegetaciones en el ventrículo izquierdo con disfunción ventricular en el ecocardiograma tomado en febrero (fig.1), por lo que deciden iniciar manejo con caspofungina y voriconazol, este último por galactomanano positivo. Con diagnóstico de endocarditis micótica, el paciente es trasladado a unidad de cuidado intensivo pediátrico donde requirió soporte inotrópico y antihipertensivo.

Los estudios imagenológicos de extensión, realizados en marzo del 2018, mostraron hallazgos en relación con embolismo séptico con compromiso de múltiples órganos: en la tomografía de abdomen simple se encontraron lesiones focales hipodensas en hígado y bazo; en la resonancia magnética cerebral se evidenciaron lesiones focales puntiformes corticales bilaterales que restringían la difusión, microabscesos que realizaban con el medio de contraste en tálamo, una sustancia blanca profunda del hemisferio izquierdo y cambios por leucoencefalomalacia asociada al metrotexate, y en la tomografía de tórax de alta resolución se relacionaban múltiples nódulos pulmonares con densidad de tejidos blandos no cavitados (fig. 2). Hasta ese momento, tanto el mielograma como la citometría de flujo de médula ósea reportaban remisión de la enfermedad.

A finales de abril del 2018 el paciente es llevado a junta médica por crecimiento de las vegetaciones cardíacas y se remite a clínica cardiovascular para manejo quirúrgico, sin embargo, los padres no aceptaron la cirugía. Un mes después el paciente reingresa al servicio de urgencias, con dolor en extremidad inferior izquierda, arcos de movilidad limitados e imposibilidad para la marcha, asociado a trauma por caída desde 60 cm de altura. La paciente estaba febril al examen físico, con extremidad inferior izquierda en flexión y abducción con disminución del pulso pedio ipsilateral. Los hallazgos de las radiografías de cadera y fémur fueron normales.

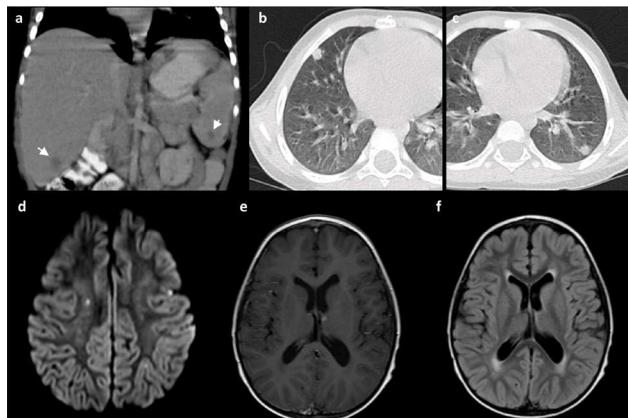


Figura 2. Estudios de marzo 2018. a. Tomografía de abdomen simple, reconstrucción coronal. Lesión hipodensa de bordes mal definidos en el polo inferior del parénquima esplénico y en el segmento VI hepático. b. y c. Tomografía de tórax de alta resolución, se observan múltiples nódulos con densidad de tejidos blandos aleatorios de predominio periféricos, no cavitados. d., e. y f. Resonancia magnética cerebral contrastada. Secuencias DWI, lesiones focales cerebrales que restringen la difusión (d). Axial T1 con contraste, microabscesos que se observan como lesiones focales mal definidas en tálamo y sustancia blanca profunda izquierdos que realzan con el medio de contraste (e). Axial FLAIR, lesiones hiperintensas localizadas en los centros semiovales y sustancia blanca periventricular por leucoencefalomatia asociada al metrotexate (f). Unidad de Radiología-Fundación Hospital Misericordia.

Ante la sospecha de artritis séptica se hace una ecografía articular de cadera la cual no muestra aumento del líquido intrarticular ni signos de sinovitis, pero incidentalmente se encuentra una masa paravesical izquierda con flujo vascular que se evalúa con ecografía Doppler color y espectral del miembro inferior izquierdo. En el Doppler se encuentra una masa hipoecoica sacular con material ecogénico en su interior, dependiente de la arteria ilíaca común izquierda y extensión a la arteria ilíaca externa, con flujo de entrada y salida en su interior (“signo de ying-yang”) a la exploración Doppler color y flujo *to and fro* a la exploración espectral y aumento de la ecogenicidad del tejido perivasculares, hallazgos compatibles con pseudoaneurisma parcialmente trombosado. La evaluación de los vasos arteriales distales mostró compromiso hemodinámico con presencia de ondas monofásicas de baja velocidad y baja aceleración. (fig. 3).

Se realiza angiografía por tomografía multidetector observando masa sacular hipodensa originada de la pared lateral de la arteria ilíaca común izquierda y extensión a la arteria ilíaca externa, con ocupación de más del 60% de la luz por trombo y compresión del músculo psoas (fig. 4).

Sospechando embolización séptica de las vegetaciones cardíacas ya conocidas y por la ausencia del antecedente de punción femoral en esa extremidad, se repitió ecocardiograma donde se demostró disminución del tamaño de las vegetaciones. Con el diagnóstico de “pseudoaneurisma

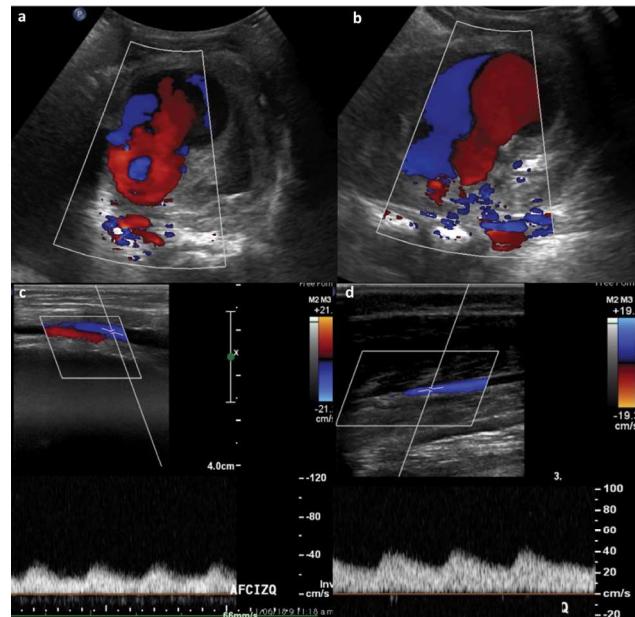


Figura 3. Ecografía Doppler color y espectral, mayo 2018. a. Masa hipoecoica sacular con material ecogénico en su luz, con aumento en la ecogenicidad del tejido adyacente. b. Pseudoaneurisma de la arteria ilíaca común izquierda con extensión a la arteria ilíaca externa que muestra el signo del ying-yang en el Doppler color. c. y d. Doppler color y espectral de la arteria femoral y arteria tibial anterior izquierda que muestran ondas monofásicas de baja velocidad pico sistólica. Unidad de Radiología-Fundación Hospital Misericordia.

micótico”, el paciente fue remitido a cirugía vascular extraínstitucional para manejo quirúrgico, bypass femoral con prótesis; sin embargo, un mes después (agosto 2018) el paciente reingresa contrarremitido a la institución porque los padres no aceptaron nuevamente el procedimiento. El paciente en ese momento se encontraba con buena evolución clínica, sin dolor, con pulsos pedios simétricos y con adecuada movilización de la extremidad inferior. En esta última hospitalización el paciente cumplió dos meses y medio sin recibir quimioterapia, pero con mielograma y citometría de flujo de médula ósea sin hallazgos de recaída. Se realizó intervención multidisciplinaria a los padres, se les explicó los riesgos de ruptura y trombosis y no cambiaron de opinión por lo que se dio de alta al paciente con anticoagulación y voriconazol (hasta completar 1 año) con seguimiento ambulatorio.

Discusión

La dilatación arterial igual o mayor a 1,5 veces de su diámetro normal se denomina aneurisma; si el saco aneurismático tiene las tres capas de la pared arterial se llamará verdadero y si sólo tiene una capa de tejido fibroso se llamará falso o pseudoaneurisma. Su diferenciación, además de la histología, se puede hacer por ecografía Doppler color y Doppler espectral (2).

Los aneurismas son más comunes en adultos, principalmente ancianos con antecedente de ateroesclerosis; los pediátricos son raros y secundarios a causas diferentes (1,6).

La mayoría de los pseudoaneurismas micóticos ocurren en pacientes que abusan de drogas ilícitas endovenosas, especialmente en adultos o adolescentes (7), inmunosuprimidos o aquellos que fueron llevados a un procedimiento intravascular invasivo (1,2) y en pacientes pediátricos la causa más común es la endocarditis bacteriana (1,2,8,9).

Los patógenos más frecuentemente asociados son *Staphylococcus spp*, *Streptococcus spp* y *Salmonella spp* (3,5,10). Otros microorganismos menos frecuentes son las bacterias Gram negativas como el *E. Coli*, la *Klebsiella spp* y la *Pseudomonas spp*. El *Mycobacterium spp* y los hongos como la *Candida albicans* y *Aspergillus spp* son aún más raros, solo el 2% (1).

El paciente de este estudio se encontraba inmunocomprometido (11), con bacteremia por *Staphylococcus spp* y fungemia por *Candida tropicalis* y con hallazgos imagenológicos de embolismo séptico a múltiples órganos. Sus hemocultivos fueron positivos, sin embargo, estos pueden ser negativos hasta en el 18% al 50% de los pacientes (2).

Como en el caso de este paciente, las infecciones pueden diseminarse vía hematogena por microembolismo de las vegetaciones cardíacas, alcanzando la *vasa vasorum* de una arteria de calibre normal o con aneurisma preexistente (2); también puede ocurrir por contigüidad (12) o por inoculación directa del microorganismo en la pared vascular.

El paciente tenía antecedente de múltiples punciones vasculares, pero no de vasos femorales. La arteritis infecciosa destruye la pared arterial y se forma subsecuentemente el pseudoaneurisma. Cuando la pared se infecta, al mismo tiempo hay compromiso del tejido perivascular con formación de hematomas y depósito de tejido fibroso e inflamatorio (1,2,9).

El pseudoaneurisma micótico puede localizarse en cualquier arteria, las más afectadas en orden descendente son: la aorta, las arterias periféricas, cerebrales y viscerales (2). La arteria femoral es la arteria periférica que más se afecta y estos casos en los adultos están asociados la mayoría de las veces al abuso de drogas endovenosas. Los aneurismas micóticos pueden ser sincrónicos o metacrónicos en el 20% al 36% de los casos (2,3,6). En este paciente, el pseudoaneurisma micótico estaba en la arteria ilíaca común, una localización no muy frecuente.

La presentación clínica es diversa pues puede tener síntomas sistémicos o síntomas localizados adyacentes a la arteria comprometida o incluso ser silente (2,6,12). Los pseudoaneurismas micóticos periféricos tienen una mortalidad menor que los aórticos, entre 0% al 15%, al parecer porque se diagnostican más tempranamente que los pseudoaneurismas de otras localizaciones (2).

La complicación más grave en las arterias periféricas es la ruptura del pseudoaneurisma. Saye *et al.* encontraron que el 24% de los pacientes pediátricos tuvieron ruptura del aneurisma antes de la cirugía, el 61% ruptura contenida y solo el 15% permanecieron intactos (1).

Actualmente la primera línea diagnóstica es la angiografía por tomografía multidetector (2). Las reconstrucciones

multiplanares, las proyecciones de máxima intensidad (MIP), las reconstrucciones volumétricas y la segmentación vascular permiten una mejor valoración del aneurisma por tomografía (2). El pseudoaneurisma se encuentra como una masa vascular lobulada con pared arterial irregular, edema y masa de tejido blando perianeurismático que puede realzar en anillo con medio de contraste. Otros hallazgos, pero menos comunes son: gas perianeurismático, trombo aneurismático, calcificación de la pared del aneurisma y disruptión de la calcificación en el sitio de infección (2, 4, 10).

El uso de la resonancia magnética se ha descrito poco y las desventajas frente a la tomografía son el tiempo del examen y los artefactos de movimiento. Sin embargo, se han desarrollado nuevas herramientas que permiten mejorar la adquisición de las imágenes como opción para aquellos que no pueden ser llevados a angiografía por tomografía (2).

Por otro lado, la ecografía Doppler permite el diagnóstico de aneurismas de arterias periféricas de manera no invasiva, pero no tiene la misma importancia en los aneurismas viscerales o cerebrales (2,4). El caso presentado se diagnosticó por medio de la ecografía Doppler y en el modo B el aneurisma micótico se ve como una lesión circunscrita hipoeoica adyacente a una arteria. Los aneurismas grandes presentan flujo turbulento, el signo del "ying-yang" en el Doppler color y las ondas *to and fro* en el Doppler espectral. Las ondas *to and fro* se producen por el flujo de la sangre entrando al aneurisma durante la sístole y saliendo durante la diástole (1,2,4). La inflamación concéntrica o excéntrica de los tejidos blandos y los hematomas periarteriales se verán como un aumento de la ecogenicidad alrededor del aneurisma (2). En el caso presentado se mostró un gran compromiso de los tejidos adyacentes, incluyendo el músculo psoas ipsilateral.

La ecografía Doppler tiene una sensibilidad del 94% y especificidad del 97% para detectar pseudoaneurismas femorales, pero no permite diferenciar si el aneurisma es micótico o no, por lo que se requiere de la clínica y otras modalidades imagenológicas (2).

Anteriormente, los estudios de primera línea fueron la arteriografía convencional y la gammagrafía con leucocitos marcados con gadolinio o indio, sin embargo, ambos métodos diagnósticos han sido reemplazados por estudios menos invasivos como la tomografía computarizada y la resonancia magnética, que además permiten la detección de cambios extravasculares (2,4).

El tratamiento tardío o no tratar el pseudoaneurisma micótico, trae consecuencias graves, incluso la muerte por sepsis fulminante y hemorragia (1). La importancia de la reconstrucción de estos aneurismas en la edad pediátrica radica en el tamaño de los vasos y la necesidad de permitir el crecimiento normal del niño (7). El manejo específico del aneurisma micótico se debe individualizar y depende de las características del aneurisma, como su localización, morfología y presencia o no de hemorragia (2).

Las opciones terapéuticas incluyen: cirugía, manejo médico o una combinación de estas. En general, los pseudoaneurismas micóticos pequeños pueden ser tratados con antibióticos endovenosos por 4 a 6 semanas (13). La

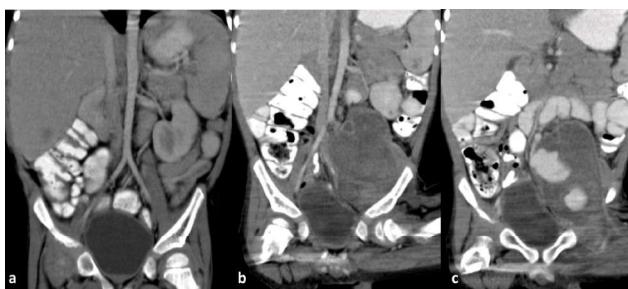


Figura 4. a. Tomografía abdominal con medio de contraste de marzo 2018, reconstrucción coronal con aorta abdominal y arterias ilíacas comunes normales. b. y c. Angiografía por tomografía multidetector de junio 2018, reconstrucciones coronales, se observa masa sacular hipodensa, originada de la pared lateral de la arteria ilíaca común izquierda con extensión a la arteria ilíaca externa y ocupación de más del 60% de la luz por presencia de trombo, sin extravasación del medio de contraste. Unidad de Radiología-Fundación Hospital Misericordia.

respuesta al manejo médico es muy variable y si hay un aneurisma residual debe ser llevado a cirugía (2,3). Por otro lado, los pseudoaneurismas micóticos grandes o sintomáticos requieren manejo urgente con cirugía abierta en combinación con manejo antibiótico endovenoso (2). La cirugía abierta, el stent endovascular y la embolización endovascular son algunos de los procedimientos invasivos que se pueden realizar (14).

En conclusión, los aneurismas pediátricos son infrecuentes y algunos casos son secundarios a infecciones ocasionando un pseudoaneurisma micótico. El diagnóstico temprano es de vital importancia por el riesgo de ruptura que se ha reportado en la literatura, de ahí el rol del radiólogo a la hora de identificarlo y caracterizarlo, ya sea por ecografía Doppler o angiografía por tomografía multidetector. El manejo quirúrgico es variable y se debe individualizar (2,5). El caso presentado expone una evolución tórpida en un paciente inmunosuprimido con una complicación no frecuente y refleja una situación común en los niños colombianos respecto a la decisión de los padres de adherirse o no al tratamiento propuesto.

Conflictivo de interés

Ninguno de los autores tiene conflicto de intereses.

Financiación

Ninguno de los autores recibió financiación para este artículo.

Bibliografía

1. Ahmed Sayed, Ahmed Elsadatand Marwa Mashaal. Aneurysms in pediatric age: a challenging and rare disease entity. Annals of Pediatric Surgery 2015, 11:192-196. <https://doi.org/10.1097/01.XPS.0000469363.71793.b5>
2. Lee WT, Mossop PJ, Little AF, Fitt GJ, et al. Infected (Mycotic) Aneurysms: Spectrum of Imaging Appearances and Management. RadioGraphics 2008; 28:1853-1868. <https://doi.org/10.1148/rg.287085054>
3. Woodrum DT, Welke KF, Fillinger MF, et al, Candida infection associated with a solitary mycotic common iliac artery aneurysm. J Vasc Surg 2001;34:166-8. <https://doi.org/10.1067/mva.2001.115381>
4. Rolando Cocio Arcos, Mario Zérega Ruiz, Sebastián Yévenes Aravena, Leonardo Lidid Alonso, Felipe Zumaeta Valenzuela, Alejandro Hollstein Gutiérrez. Septic embolism and embolic source, what and how to look for? URL: <http://www.eurorad.org/case.php?id=13289>.
5. León LR, Mills JL. Diagnosis and Management of Aortic Mycotic Aneurysms. Vascular and endovascular Surgery 44(1) 5-13. 2010.<https://doi.org/10.1177/1538574409344225>
6. Müller BT, Wegener OR, Grabitz K, et al. Mycotic aneurysms of the thoracic aorta and abdominal aorta and iliac arteries: experience with anatomic and extra-anatomic repair in 33 cases. J Vasc Surg 2001;33:106e13.<https://doi.org/10.1067/mva.2001.110356>
7. Peirce C, Coffey C, O'Grady H, Aly S, O'Malley K, O'Donohoe M. The management of mycotic femoral pseudoaneurysms in intravenous drug abusers. Ann Vasc Surg 2009; 23: 345-9. <https://doi.org/10.1016/j.avsg.2008.08.013>
8. Semba CP, Sakai T, Slonim SM, et al. Mycotic aneurysms of the thoracic aorta: repair with use of endovascular stent-grafts. J Vasc Interv Radiol. 1998;9:33e40.
9. Bayer AS, Scheld WM. Endocarditis and intravascular infections. In Mandell GL, Bennett JE, Dolin R, eds. Principles and practice of infectious diseases. 5 ed. Philadelphia: Churchill-Livingstone; 2000. p. 888-92
10. Joshi S, Mitta N. Mycotic Aneurysm of Iliac Artery: A Rare Complication of Salmonella Infection. Indian Journal of Vascular and Endovascular Surgery 2014; 1-1. <https://doi.org/10.4103/0972-0820.142365>
11. Semin Chonga, Kyung Soo Lee a, Chin A Yia, Myung Jin Chunga,Tae Sung Kima, Joungho Hanb. Pulmonary fungal infection: Imaging findings in immunocompetent and immunocompromised patients. European Journal of Radiology 59 (2006) 371-83. <https://doi.org/10.1016/j.ejrad.2006.04.017>
12. Chandler BT, Ryer EJ, Keyser BM, Elmore JR. A hybrid approach to appendicitis with right external iliac artery/pseudo aneurysm: A case report. Int J Surg Case Rep. 2017;33:99-101. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2017.03.001>
13. Brown SL, Busuttil RW, Baker JD, Machleder HI, Moore WS, Barker WF. Bacteriologic and surgical determinants of survival in patients with mycotic aneurysms. J Vasc Surg. 1984;1:541-7.[https://doi.org/10.1016/0741-5214\(84\)90040-5](https://doi.org/10.1016/0741-5214(84)90040-5)
14. Chino S, Kato N, Noda Y, Oue K, Tanaka S, Hashimoto T, Higashigawa T, et al. Treatment of infected aneurysms of the abdominal aorta and iliac artery with endovascular aneurysm repair and percutaneous drainage. Ann Vasc Surg. 2016; 36:289.e11-289.e15. <https://doi.org/10.1016/j.avsg.2016.02.026>