

RECIBIDO:
1 julio 2023
APROBADO:
27 octubre 2023

Hemoptisis secundaria a tuberculosis pulmonar complicada con pseudoaneurisma de Rasmussen. Reporte de un caso en pediatría

Hemoptysis in Pulmonary Tuberculosis Complicated by Rasmussen's Pseudoaneurysm. A Pediatric Case Report

María Sol Fernández Sardá¹, María Macarena Oneglia¹,
Flores Barhoum², Catalina Marrón², Gastón Marmo², Sergio Sierre³,
María Andrea Mónaco⁴, Claudio Castaños¹

M. Sol Fernández Sardá
<https://orcid.org/0000-0001-7642-6399>
M. Macarena Oneglia
<https://orcid.org/0000-0002-0575-689X>
Flores Barhoum
<https://orcid.org/0009-0006-2534-2818>
Catalina Marrón
<https://orcid.org/0009-0000-0844-7905>
Gastón Marmo
<https://orcid.org/0009-0004-9204-0292>
Sergio Sierre
<https://orcid.org/0000-0002-2103-5849>
M. Andrea Mónaco
<https://orcid.org/0009-0008-8182-6790>
Claudio Castaños
<https://orcid.org/0000-0002-3662-5067>

- 1 Hospital Prof. Dr. Juan P. Garrahan. Servicio de Neumonología, Buenos Aires, Argentina.
- 2 Hospital Prof. Dr. Juan P. Garrahan. Servicio de Clínica Médica, Buenos Aires, Argentina.
- 3 Hospital Prof. Dr. Juan P. Garrahan. Servicio de Intervencionismo, Buenos Aires, Argentina.
- 4 Hospital Prof. Dr. Juan P. Garrahan. Servicio de Epidemiología e Infectología, Buenos Aires, Argentina..

AUTOR CORRESPONSAL:

M. Sol Fernández Sardá, mariasolfs@gmail.com

Resumen

Presentamos el caso de un niño de 12 años que consultó por hemoptisis, sin otros síntomas asociados. Se realizó radiografía de tórax (patológica), laboratorio con aumento moderado de reactantes de fase aguda, PPD (negativa), esputos x 3 con baciloscopias negativas y tomografía de tórax con contraste i.v. que mostró imágenes de árbol en brote en todos los lóbulos y una imagen de dilatación vascular de una rama de la arteria pulmonar en lóbulo superior izquierdo. Se plantearon diagnósticos diferenciales: malformación vascular primaria o lesión secundaria a infección. La angiografía digital permitió confirmar el pseudoaneurisma y embolizarlo. Luego de 17 días, 2/3 cultivos de esputo fueron positivos para *Mycobacterium tuberculosis*. El niño realizó tratamiento antituberculoso con drogas de primera línea con evolución clínica favorable. Este caso resalta la importancia de considerar el pseudoaneurisma de Rasmussen entre las posibles complicaciones de un paciente con tuberculosis y hemoptisis recurrente o masiva.

Palabras clave: hemoptisis, mycobacterium tuberculosis, angiotomografía, embolización, adolescente.

Abstract

We present the case of a 12-year-old boy admitted to the hospital due to hemoptysis without other symptoms. We performed a Thorax X-Ray (pathological), laboratory with elevated acute phase reactants, TST (negative), sputum x 3 with negative smear and computed tomography angiography showing a tree-in-bud pattern in all lobes, and dilatation of a brunch of the pulmonary artery in the upper left lobe. We considered primary vascular anomaly or lesion due to infection as a differential diagnosis. The patient

underwent digital angiography and therapeutic embolization of this pseudoaneurysm. After seventeen days, 2/3 of the sputum cultures were positive for *Mycobacterium tuberculosis*. The patient received standard anti-TB therapy with favorable evolution.

This case highlights the importance of considering complications such as Rasmussen's pseudoaneurysm in patients with pulmonary tuberculosis and recurrent or massive hemoptysis.

Keywords: hemoptysis, mycobacterium tuberculosis, computed tomography angiography, therapeutic embolization, adolescent.

Introducción

La hemoptisis se define como la sangre proveniente de las vías aéreas inferiores.¹ El pulmón presenta un doble sistema de irrigación: las arterias pulmonares, de baja presión y alto flujo, y las bronquiales, de alta presión y menor flujo. El sangrado se origina comúnmente en las arterias bronquiales, aunque también puede proceder de arterias sistémicas no bronquiales y en menor porcentaje de las arterias y microcirculación pulmonar. Los vasos de la red bronquial causantes de hemorragia suelen ser vasos de neoformación, asociados a hipertrofia de los ramos bronquiales, generalmente secundarios a enfermedad inflamatoria.²

La enfermedad causal de hemoptisis puede afectar tanto la vía aérea como el parénquima pulmonar, o los vasos pulmonares. Entre las causas más frecuentes en pediatría se encuentran los procesos infecciosos (de diversa etiología, incluyendo tuberculosis), la aspiración de cuerpo extraño y las bronquiectasias, pero también existen causas poco frecuentes como anomalías vasculares.^{3,4}

Presentamos el caso clínico de un adolescente con hemoptisis secundaria a una complicación infrecuente de tuberculosis, una enfermedad de alta prevalencia en nuestra población.

Caso clínico

Paciente masculino de 12 años de edad, oriundo de C.A.B.A., sin antecedentes patológicos de relevancia, con vacunas completas. Consultó al servicio de emergencias por presentar hemoptisis de 72 horas de evolución. Refirió dos episodios de sangrado rojo rutilante de moderada cantidad, con presencia de coágulos, no precedidos ni acompañados de otra sintomatología. No presentaba nexo epidemiológico para tuberculosis.

Al ingreso se lo valoró hemodinámicamente compensado, vigil, activo, afebril y eutrófico. En suficiencia cardiorrespiratoria (SpO₂ 99% aire ambiente), eupneico (20 rpm) con auscultación pulmonar normal, buena entrada de aire bilateral, sin ruidos agregados. No presentaba visceromegalias ni adenopatías. Peso en percentil 90.

Como estudios iniciales se realizó radiografía de tórax postero-anterior que evidenciaba compromiso pulmonar bilateral, con infiltrado heterogéneo intersticio-alveolar a predominio bi-basal y apical izquierdo (Figura 1); laboratorio con hemograma 7.920 glóbulos blancos/mm³ (70 % neutrófilos, 18% linfocitos, 2% eosinófilos), hemoglobina 13,6 mg/dl y plaquetas 251.000/mm³, coagulograma (T.P 84% y K.P.T.T. 42 segundos), eritrosedimentación 40 mm/hora, proteína C reactiva 14 mg/dl, albúmina 4,39 g/dl, hepatograma dentro de parámetros normales y serología para VIH negativa; PCR para SARS-CoV-2 en hisopado nasofaríngeo negativo. Se decidió su internación para continuar con exámenes complementarios y eventual tratamiento.

Se estudió para tuberculosis con prueba cutánea de derivado proteico purificado (PPD) con resultado negativo (5 mm), tres esputos con baciloscopias negativas y muestras ingresadas para cultivo. Radiografía de tórax postero-anterior de la madre dentro de parámetros normales.

Se realizó angiotomografía de tórax que informó: ocupación del espacio aéreo a nivel segmento apico-posterior del lóbulo superior izquierdo (LSI), con realce heterogéneo, con presencia de pequeñas imágenes quísticas, con contenido aéreo. Se identificaron ramas de la arteria pul-

monar en este segmento, de aspecto tortuoso, con imagen sacular asociada, en comunicación con un vaso pulmonar, de 4,4 x 4,5 x 6,3 mm, en probable relación con pseudoaneurisma, rodeado de un área hipodensa, heterogénea, en probable relación con proceso inflamatorio/infeccioso (Figura 2). Se observaron vasos tortuosos, rodeando la tráquea y los hilos pulmonares, que se originan de ambas arterias subclavias, en relación con lo anteriormente descrito. Opacidades micronodulillares con patrón de árbol en brote, en todos los lóbulos a predominio izquierdo, con tendencia a la consolidación en lóbulo inferior izquierdo y llingula. Resto de estructuras mediastino pulmonares sin signos patológicos (Figura 3).

Figura 1.

Radiografía de tórax postero-anterior.



Figura 2.

Angiotomografía de tórax, corte coronal, ventana mediastínica. Pseudoaneurisma de rama pulmonar (flecha blanca), rodeado de área heterogénea.

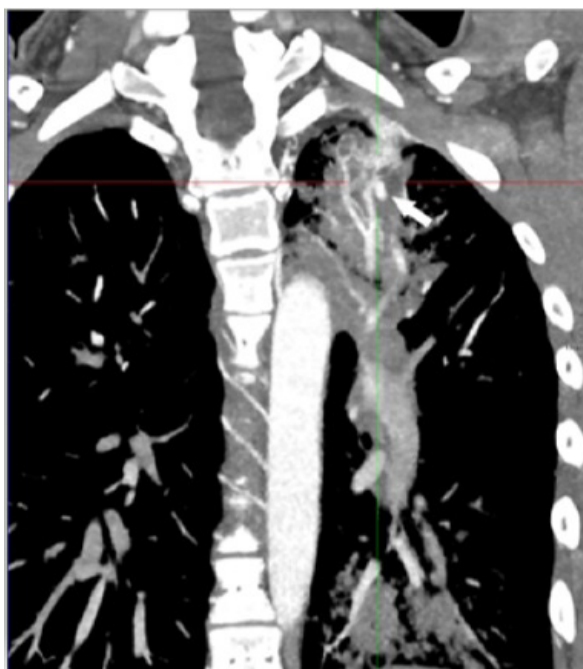
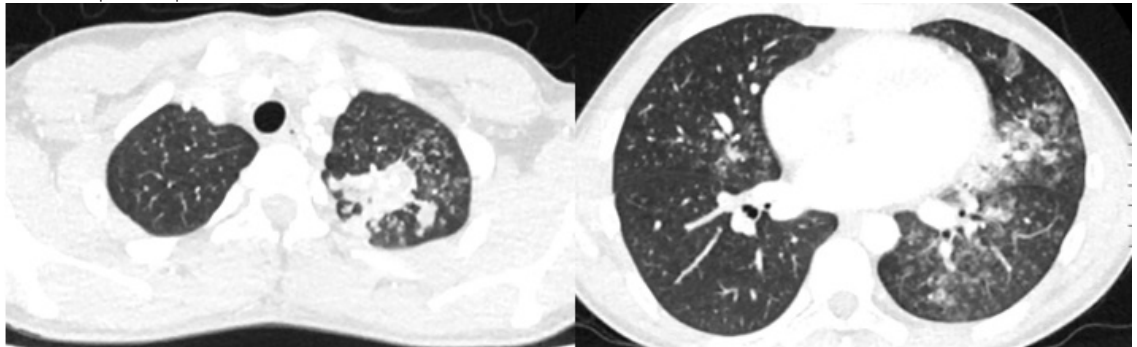


Figura 3.

Angiotomografía de tórax, cortes transversales, ventana pulmonar. A. Imagen hiperdensa de ocupación alveolar en lóbulo superior izquierdo. B. Se observan zonas parcheadas de vidrio esmerilado y múltiples imágenes de árbol en brote que comprometen todos los lóbulos

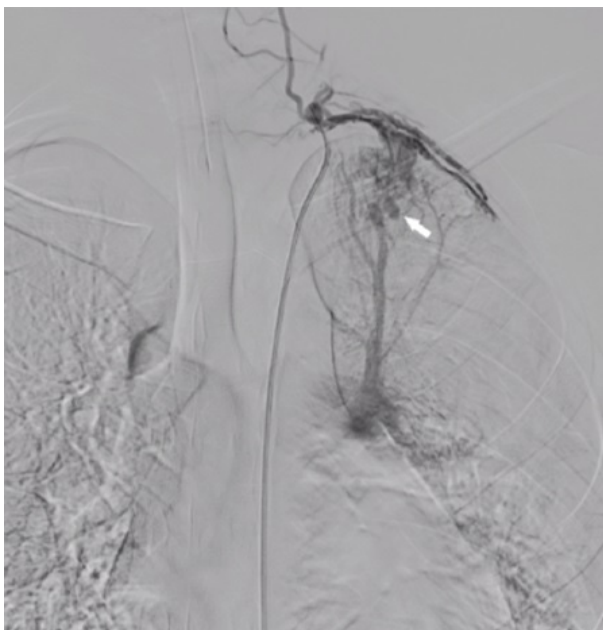


Se realizó interconsulta con el servicio de infectología, neumonología e intervencionismo. Como diagnósticos probables, se plantearon malformación vascular primaria versus lesión secundaria a proceso infeccioso.

En este contexto se realizó arteriografía digital diagnóstica donde se evidenció hipertrofia de ramas bronquiales derechas e izquierdas, dilatadas y tortuosas, con patrón inflamatorio, con destino a lóbulo medio, lóbulo inferior derecho, LSI y llingula, como así también fístulas a ramos de la arteria pulmonar, en topografía del LSI. Estas fístulas fueron aún más evidentes a partir del cateterismo selectivo del tronco tirocervical izquierdo, ramo de la arteria subclavia homolateral, que ponía en evidencia, en tiempos tardíos, al pseudoaneurisma en un ramo de división distal de la arteria pulmonar (Figura 4). Se procedió a la embolización terapéutica de los ramos patológicos en forma superselectiva, con el uso de microcatéter y microcoils de 0,018 micras, y se completó el procedimiento con partículas de polivinil-alcohol (PVA) de 700-1000 micrones.

Figura 4.

Angiografía digital de tórax. El cateterismo selectivo del tronco tirocervical izquierdo, ramo de la arteria subclavia homolateral, pone en evidencia, en tiempos tardíos, al pseudoaneurisma en un ramo de división distal de la arteria pulmonar (flecha blanca).



Por no presentar diagnóstico etiológico, se realizó lavado broncoalveolar (LBA) y se tomaron muestras para medición de galactomananos, GeneXpert para tuberculosis y cultivos para gérmenes comunes, hongos y micobacterias.

Posteriormente, y ante la sospecha diagnóstica de tuberculosis (por clínica e imágenes), se inició tratamiento empírico con drogas antifímicas de primera línea a dosis estándar (isoniacida, rifampicina, pirazinamida y etambutol).

A los 17 días del ingreso, 2/3 cultivos de esputo fueron positivos para *Mycobacterium tuberculosis* sensible a rifampicina e isoniacida. Posteriormente positivizó el cultivo del LBA. El resto de las muestras, incluido GeneXpert, fueron negativas. Se confirmó así el diagnóstico de tuberculosis pulmonar complicada con pseudoaneurisma de Rasmussen.

El paciente presentó evolución clínica favorable y se otorgó egreso hospitalario a los 17 días. Actualmente, completó 9 meses de tratamiento antifímico, sin nuevos episodios de hemoptisis.

Discusión

Ante un paciente con sospecha de hemoptisis es importante confirmar su existencia, establecer su gravedad, localizar el origen y determinar su causa.² Para ello es imprescindible una anamnesis y examen físico detallados.¹ Entre los exámenes complementarios se debe solicitar laboratorio (hemograma y coagulograma), muestras para descartar infección, PPD¹ y radiografía de tórax, que puede evidenciar la localización y extensión del compromiso pulmonar y sugerir el sitio del sangrado, aunque la ausencia de hallazgos radiográficos patológicos no lo descarta. La tomografía axial computarizada (TAC) de tórax con contraste i.v. podría ser necesaria para valorar lesiones cavitarias o anomalías vasculares.⁵ En algunos casos, se requiere la realización de una broncoscopia para confirmar el sangrado, localización del mismo o incluso como tratamiento (extracción de cuerpo extraño).^{2,5} El manejo depende de la magnitud del sangrado y siempre debe realizarse tratamiento etiológico. La embolización está indicada en todos los pacientes con hemoptisis masiva (> 200 ml/día o 8 ml/kg/día)⁶ o recurrente.²

La tuberculosis es una enfermedad endémica en Argentina. En el año 2021, se reportaron 12.569 casos, de los cuales la mayoría fueron casos nuevos o recaídas, el 81,2% fueron casos pulmonares, el 56,8% correspondía a varones y el 16,7% a menores de 20 años.⁷ Luego de la primoinfección, los niños mayores y adolescentes pueden presentar formas primarias (más inmediatas), neumoganglionar o pleural, o extraprimarias (más tardías), con síndrome de impregnación, semiología de cavitación a nivel pulmonar y expectoración hemoptoica o hemoptisis.⁸

El pseudoaneurisma de Rasmussen se encuentra entre las complicaciones poco frecuentes de la tuberculosis extraprimaria. Fue descrito por primera vez en 1868 por el médico danés Fritz Rasmussen.⁹ Tiene una incidencia aproximada del 4-5% en adultos con tuberculosis cavitaria.¹⁰ Sin embargo, existen pocos reportes de caso en pediatría.^{9,11-14}

Se trata de un pseudoaneurisma micótico que afecta alguna rama de las arterias pulmonares¹⁵ y generalmente compromete los lóbulos superiores.¹⁶ Se forma a partir del reemplazo de la túnica media y adventicia arterial, primero por tejido de granulación y luego por fibrina, lo que debilita y adelgaza su pared.¹⁵ Puede estar perfundido en forma simultánea por ramas pulmonares y sistémicas, como en el caso que describimos; sin embargo, no existen reportes de frecuencia de estas fístulas.¹⁷

En los casos pediátricos reportados en la literatura,^{9,11-14} así como en el que presentamos, la hemoptisis es la manifestación inicial^{15,18} y la sospecha diagnóstica se establece a partir del hallazgo en la TAC de tórax con contraste i.v. de una lesión nodular que en la fase arterial presenta captación de contraste y en la fase venosa lavado del mismo, pero con conservación de su morfología (dilatación arterial), en un paciente con hallazgos parenquimatosos de tuberculosis.^{16,19}

Sin tratamiento, la evolución puede ser letal debido a hemoptisis masiva,¹⁸ como vemos en un reporte reciente de un paciente de 23 años en Alemania.²⁰ Por tal motivo, esta entidad requiere de un abordaje multidisciplinario, donde la embolización junto con el tratamiento médico con drogas antituberculosas son opciones terapéuticas de primera línea.

Conclusiones

Si bien es infrecuente, es importante considerar el pseudoaneurisma de Rasmussen como una posible complicación en un paciente con tuberculosis pulmonar y hemoptisis recurrente o masiva. El tratamiento endovascular junto con el tratamiento médico puede salvar la vida del paciente.

Financiamiento: los autores declaran que el trabajo no tuvo financiamiento.

Conflictos de interés: los autores declaran que no tienen conflictos de intereses relacionados con el tema de esta publicación.

Contribuciones de los autores: Todos los autores hemos participado en las aportaciones importantes a la idea y diseño del estudio, o a la recogida de datos, al análisis e interpretación de los mismos. También en la redacción del borrador del artículo o la revisión crítica de su contenido intelectual sustancial y en la aprobación final de la versión que va a publicarse.

El Editor en Jefe, Dr. Francisco Arancibia, realizó el seguimiento del proceso de revisión y aprobó este artículo.

Referencias

- 1 Robaldo JF. Capítulo 69: Hemóptisis. Enfermedades respiratorias pediátricas. McGraw-Hill, 2003, pp. 663-6.
- 2 Cordovilla R, de Miguel EB, Ares AN et al. Diagnóstico y tratamiento de la hemoptisis. Arch Bronconeumol 2016;368-77. Doi: 10.1016/j.arbres.2015.12.002.
- 3 Shnayder R, Needleman JP. Hemoptysis. Pediatr Rev 2018;319-21. Doi: 10.1542/pir.2017-0157.
- 4 González Fernández A, Torres Torres AR, Valverde Molina J. Traumatismo torácico, neumotórax, hemoptisis y tromboembolismo pulmonar. Protoc Diagn Ter Pediatr 2017;1:189-209.
- 5 Godfrey S. Pulmonary hemorrhage/hemoptysis in children. Pediatr Pulmonol 2004;37:476-84. Doi: 10.1002/ppul.20020.
- 6 Gaude GS. Hemoptysis in children. Indian Pediatr 2010;47:245-54. Doi: 10.1007/s13312-010-0044-z.
- 7 Ministerio de Salud de la Nación Argentina. Boletín N° 6: Tuberculosis y Lepra en la Argentina. [Internet]. [Consultado 14 May 2023]. Disponible en: <https://bancos.salud.gob.ar/recurso/boletin-ndeg-6-tuberculosis-y-lepra-en-la-argentina>
- 8 Comité Nacional de Neumología, Comité Nacional de Infectología et al. Criterios de diagnóstico y tratamiento de la tuberculosis infantil. Arch Argent Pediatr (n.d.) [Internet]. [Consultado 14 May 2023]. Disponible en: <https://www.sap.org.ar/uploads/consensos/criterios-de-diagn-oacutestico-y-tratamiento-de-la-tuberculosis-infantil-nbsp2016.pdf>
- 9 Bönücüoğlu E, Çınar C, Kıymet E. A rare complication of pulmonary tuberculosis in childhood: Rasmussen's aneurysm in a 9-year-old child with Down syndrome. Turk J Pediatr 2022;64:408-11. Doi: 10.24953/turkjped.2021.1617.
- 10 Santelli ED, Katz DS, Goldschmidt AM et al. Embolization of multiple Rasmussen aneurysms as a treatment of hemoptysis. Radiology 1994;193:396-8. Doi: 10.1148/radiology.193.2.7972750.
- 11 Yu MWL, Li AM, Lai MH et al. Rare but life-threatening cause of massive haemoptysis in an adolescent with tuberculosis: Rasmussen's aneurysm. BMJ Case Rep 2023;16. Doi: 10.1136/bcr-2023-255480.
- 12 Gallardo MEA. Giant Rasmussen's aneurysm in a 9-year-old boy: A case report. Radiol Case Rep 2022;17:4168-75. Doi: 10.1016/j.radcr.2022.08.016.
- 13 Gandhi S, Jaiswal A, Joshi S et al. Rasmussen's Aneurysm in a Child with Multidrug Resistant Pulmonary Tuberculosis. Indian J Pediatr 2020;87:564. Doi: 10.1007/s12098-020-03211-4.
- 14 Gesuete V, Corzani A, Bronzetti G et al. Rasmussen's aneurysm in childhood: a case report. Congenit Heart Dis 2013;8:E41-4. Doi: 10.1111/j.1747-0803.2011.00609.x.
- 15 Kim HY, Song KS, Goo JM et al. Thoracic sequelae and complications of tuberculosis. Radiographics 2001;21:839-58. Doi: 10.1148/radiographics.21.4.g01j106839.
- 16 Nguyen ET, Silva CIS, Seely JM et al. Pulmonary artery aneurysms and pseudoaneurysms in adults: findings at CT and radiography. Am J Roentgenol 2007;188:W126-34. Doi: 10.2214/AJR.05.1652.
- 17 Remy J, Lemaitre L, Lafitte JJ et al. Massive hemoptysis of pulmonary arterial origin: diagnosis and treatment. Am J Roentgenol 1984;143:963-9. Doi: 10.2214/ajr.143.5.963.
- 18 Mariani E, Marmo G, Manfrin L. Tuberculosis Pulmonar. In: Fundación Hospital de Pediatría Dr. J. P. Garrahan. Medicina Interna Pediátrica 2022; 14.
- 19 Peghini Gavilanes E, Fernández-Velilla M, Bermejo Moriño A et al. Pseudoaneurisma de Rasmussen: hallazgos en tomografía computada. Revisión de casos. Rev Argent Radiol 2016;80:122-6. Doi: 10.1016/j.rard.2016.03.004.
- 20 Meiler S, Hamer OW, Blaas S et al. Rasmussen Aneurysm: A Forgotten Complication. Am J Respir Crit Care Med 2023;207:206-7. Doi: 10.1164/rccm.202201-01921M.