

# Fístula traqueoinominada pós-traqueostomia: tratamento endovascular

Post-tracheostomy tracheoinnominate fistula: endovascular treatment

Lisieux Eyer de Jesus<sup>a,\*</sup> , Eduardo Wagner Guimarães Marques da Silva<sup>a</sup> ,  
Marcos Balieiro<sup>a</sup> , Karen Feldman<sup>a</sup> , Samuel Dekermacher<sup>a</sup> 

## RESUMO

**Objetivo:** As fístulas traqueoinominadas (TIF) são complicações raras e frequentemente letais das traqueostomias (TQT). Controle imediato do sangramento e tratamento cirúrgico são essenciais para evitar a morte. Este trabalho relata o tratamento endovascular bem-sucedido de uma TIF em um pré-escolar e revisa a literatura a respeito da epidemiologia, profilaxia, diagnóstico e tratamento de TIF em pacientes pediátricos.

**Descrição do caso:** Uma criança de 3 anos de idade, com encefalopatia, restrita ao leito e traqueostomizada havia dois anos foi internada para tratar um episódio de traqueíte. A criança usava uma cânula plástica balonada continuamente inflada com baixa pressão. A paciente apresentou dois episódios autolimitados de sangramento pela traqueostomia em um intervalo de 48 horas. Um novo episódio foi sugestivo de sangramento arterial e assumiu-se o diagnóstico provisório de TIF, confirmado através de angiotomografia, atingindo a bifurcação da artéria inominada e a parede direita da traqueia. A paciente foi imediatamente tratada pela inserção endovascular de um enxerto de politetrafluoroetileno (PTFE)/nitinol em “Y”. No seguimento, não foram encontradas recorrência de TIF, sequelas neurológicas ou isquemia do braço direito.

**Comentários:** Deve-se suspeitar de TIF sempre que houver um sangramento significativo pelo traqueostoma. Técnicas endovasculares possibilitam o rápido controle do sangramento com baixa morbidade, mas estão limitadas a poucos relatos de caso e pacientes pediátricos, sendo todos em adolescentes. O seguimento a longo prazo é necessário para avaliar se ocorrem complicações vasculares dos *stents* com o crescimento.

**Palavras-chave:** Traqueostomia; Tronco braquiocefálico; Hemorragia; Técnicas endovasculares.

## ABSTRACT

**Objective:** Tracheoinnominate fistula (TIF) is a rare and frequently lethal complication of tracheostomies. Immediate bleeding control and surgical treatment are essential to avoid death. This report describes the successful endovascular treatment of TIF in a preschooler and reviews the literature concerning epidemiology, diagnosis, prophylaxis, and treatment of TIF in pediatric patients.

**Case description:** A tracheostomized neurologically impaired bed-ridden three-year-old girl was admitted to treat an episode of tracheitis. Tracheostomy had been performed two years before. The child used a plastic cuffed tube continually inflated at low pressure. The patient presented two self-limited bleeding episodes through the tracheostomy in a 48h interval. A new episode was suggestive of arterial bleeding, immediately leading to a provisional diagnosis of TIF, which was confirmed by angiotomography, affecting the bifurcation of the innominate artery and the right tracheal wall. The patient was immediately treated by the endovascular placement of polytetrafluoroethylene (PTFE)/nitinol stents in Y configuration. No recurrent TIF, neurological problems, or right arm ischemia have been detected in the follow-up.

**Comments:** TIF must be suspected after any significant bleeding from the tracheostoma. Endovascular techniques may provide rapid bleeding control with low morbidity, but they are limited to a few case reports in pediatric patients, all of them addressing adolescents. Long-term follow-up is needed to detect whether stent-related vascular complications will occur with growth.

**Keywords:** Tracheostomy; Brachiocephalic trunk; Hemorrhage; Endovascular procedures.

\*Autor correspondente. E-mail: [lisieuxeyerdejesus@gmail.com](mailto:lisieuxeyerdejesus@gmail.com) (L.E. Jesus).

<sup>a</sup>Hospital Federal dos Servidores do Estado, Ministério da Saúde, Rio de Janeiro, RJ, Brasil. Recebido em 28 de junho de 2020; aprovado em 2 de outubro de 2020.

## INTRODUÇÃO

A traqueostomia é frequentemente indicada para crianças com encefalopatia crônica grave. Complicações letais estão relacionadas à decanulação acidental, obstrução da cânula e fistula traqueo-inominada (TIF).

A TIF é incomum (0,6–0,7% ou 1:150 traqueostomias em adultos),<sup>1,2</sup> mas apresenta mortalidade muito elevada. Devido à sua relativa raridade, a experiência de qualquer equipe cirúrgica é restrita, o que também limita o reconhecimento precoce e o sucesso do tratamento.

Controle imediato do sangramento e baixa morbidade cirúrgica são essenciais para evitar o óbito nesse grupo de pacientes frágeis.

Pacientes pediátricos com deficiência neurológica são um grupo especial. A traqueostomia é geralmente usada como tratamento definitivo. Esses pacientes estão sujeitos a complicações tardias do procedimento: neste grupo, a maioria dos episódios de TIF é tardia. O tratamento endovascular da TIF pode ser vantajoso para evitar o risco de sangramento perioperatório e a morbidade das toracotomias. No entanto, seu uso não foi relatado em crianças pequenas, nas quais o crescimento futuro deve ser considerado. Descrevemos aqui o caso de tratamento endovascular bem-sucedido de TIF em um pré-escolar e revisamos a literatura sobre epidemiologia, diagnóstico, profilaxia e tratamento de TIF em pacientes pediátricos com deficiência neurológica.

## RELATO DE CASO

Uma menina de três anos de idade, acamada, apresentando quadro neurológico crônico (síndrome congênita do Zika vírus), foi internada para tratar um episódio de traqueíte. Ela havia sido submetida a traqueostomia e gastrostomia dois anos antes para tratamento de aspiração pulmonar crônica, episódios recorrentes de pneumonia e incoordenação da deglutição. Foi prescrita cânula plástica balonada continuamente inflada com baixa pressão, pois a criança necessitava de ventilação com pressão positiva intermitente.

A paciente apresentou dois episódios de sangramento autolimitado à traqueostomia com intervalo de 48 horas, inicialmente atribuídos a trauma aspirativo. Novo episódio 48 horas após o relato inicial com sangue em projétil brilhante, sugestivo de sangramento arterial, foi então descrito pela mãe, necessitando de avaliação cirúrgica. A paciente não apresentava instabilidade fisiológica ou anemia grave.

Um diagnóstico provisório de TIF foi dado pela equipe de cirurgia pediátrica. Uma angiogramografia imediata confirmou o diagnóstico e revelou TIF afetando a bifurcação da artéria inominada (AI) e a parede traqueal direita, com pequeno acúmulo de contraste próximo à fistula.

A paciente foi tratada com a colocação endovascular de quatro stents de politetrafluoroetileno expandido (PTFE)/nitinol (Viabhan®) nas artérias carótida direita (5×50 e 6×100 mm) e

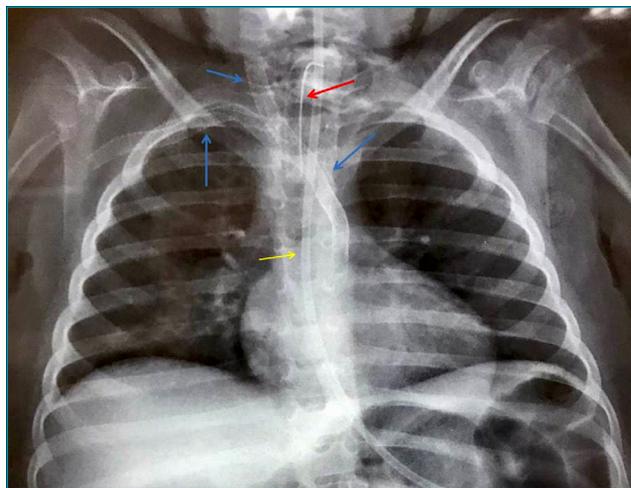
subclávia direita (5×25 e 5×100 mm), cruzando a transição para a AI na configuração Y (Figura 1). Um stent (5×25 mm) migrou acidentalmente, ficando próximo à bifurcação ilíaca. Esse stent deslocado não foi recuperado, pois a equipe considerou que as tentativas de remoção implicariam uma relação risco-benefício desfavorável. Não foi detectada piora neurológica, isquemia de braço direito ou complicações relacionadas ao stent migrado após a cirurgia. O controle angiográfico, incluindo nova angiotomografia quatro meses após a cirurgia, mostrou fluxo sanguíneo normal nas artérias carótida e subclávia direita.

Foram prescritos anticoagulantes por dois meses (enoxaparina 20 mg bid por via subcutânea). Cinco meses após a cirurgia, a paciente permanece assintomática, sem novos episódios hemorrágicos ou complicações infecciosas, trombóticas ou isquêmicas relacionadas aos stents.

## DISCUSSÃO

A maioria dos sangramentos significativos pelo traqueostoma a partir de 48 horas após o procedimento se devem à TIF.<sup>1</sup> Como regra, os pacientes com sangramento >10 mL do estoma ou cânula da traqueostomia >48 horas após o procedimento devem ter o diagnóstico de TIF considerado até prova em contrário. A literatura sugere que a maioria dos casos ocorre no primeiro mês após a traqueostomia, mas esse achado é questionável quando se trata de crianças com deficiência neurológica submetidas à traqueostomia definitiva ou separação laringotraqueal (SLT). Nesse grupo, a maioria dos episódios de TIF são tardios e parecem ser mais comuns (4,0–6,2% dos pacientes).<sup>3</sup>

A TIF é causada pela erosão progressiva da parede traqueal, passando a se comunicar com os vasos arteriais mediastinais adjacentes,



**Figura 1** Radiografia de tórax mostrando a posição dos stents intra-arteriais. Setas azuis: stents de politetrafluoroetileno implantados; seta vermelha: tubo de traqueostomia; seta amarela: sonda nasogástrica.

mais comumente a AI, que está localizada entre a traqueia e o esterno no mediastino superior. A pressão de um balão constantemente inflado, especialmente em altas pressões, ou o contato constante com a ponta da cânula causam o problema.<sup>1</sup> Necrose, inflamação crônica, tecido de granulação e cicatrizes são as marcas da doença.<sup>4,5</sup> Deformidades torácicas (incluindo escoliose), distância encurtada entre o esterno e a coluna vertebral<sup>3</sup> e posicionamento anormal do pescoço/opistótono aumentam o risco.<sup>6</sup> Anormalidades vasculares, traqueíte, pescoço encurtado e colocação da traqueostomia sob o 4º anel traqueal também estão relacionados à TIF.

De um terço a metade dos casos apresentam episódios preliminares de sangramento autolimitado pela traqueostomia (“sangramento sentinela”), seguidos de sangramento intenso causando choque hipovolêmico, exsanguinação e/ou asfixia. Em alguns pacientes, pode ser observada pulsação da cânula.<sup>1</sup> Broncoscopia/traqueoscopia são procedimentos controversos nessa situação, pois implicam manipulação da traqueia e possível deslocamento da cânula, com risco de perda de hemostasia durante o processo,<sup>7</sup> sendo indicada apenas se for a única forma de comprimir a fístula enquanto se aguarda a cirurgia.<sup>8,9</sup> O diagnóstico pode ser confirmado por angiotomografia em pacientes estáveis, mas o exame pode demonstrar apenas o cruzamento da AI localizado sobre o balão inflado ou ponta da cânula, e/ou irregularidade local sugerindo inflamação. A arteriografia intraoperatória continua sendo o padrão-ouro até o momento.

Na maioria dos casos, o defeito vascular é pequeno,<sup>1</sup> mas pode chegar a 10 mm.<sup>7-11</sup> O sangramento pode ser controlado por hiperinsuflação do balão da cânula em 85% dos casos.<sup>1</sup> A cânula não deve ser removida e deve ser estabilizada na posição após controle do sangramento. A compressão digital direta da AI contra o esterno por meio de uma incisão cutânea logo acima do manúbrio ou por meio do traqueóstomo, em paralelo à traqueia ou ao tubo de ventilação, pode funcionar para adultos,<sup>1</sup> mas é difícil ou impossível em crianças devido ao baixo calibre da traqueia pediátrica e estreito torácico superior.<sup>9</sup>

O tratamento clássico requer esternotomia/toracotomia de emergência. Choque perioperatório e exsanguinação são comuns, e a taxa de sobrevivência foi reportada em 25% após cirurgia aberta (*versus* zero após tratamento expectante).<sup>12</sup> Controle proximal e distal dos vasos envolvidos é essencial antes de dissecar a fístula. As incisões transversais supraesternais<sup>3</sup> ou esternotomias superiores limitadas com ou sem incisão em “colar”<sup>13</sup> oferecem menos morbidade e acesso rápido, mas a exposição é limitada, especialmente em crianças. Toracotomia com oxigenação por membrana extracorpórea (ECMO) e oclusão traqueal foram usadas para tratar um adolescente no Japão,<sup>14</sup> mas essa opção raramente está disponível.

O fechamento direto da fístula costuma não ser satisfatório devido à inflamação das paredes arterial e traqueal. As estruturas envolvidas são incapazes de segurar as suturas durante a cirurgia

ou possibilitam pseudoaneurismas futuros, apresentando-se com sangramentos bruscos causados pela recorrência precoce. A maioria dos autores recomenda a ligadura e excisão do segmento da AI envolvido, não relatando sequelas neurológicas, desde que haja um polígono de Willis patente.<sup>1,8,10</sup> Remendos pericárdicos e vasculares, além de desvios locais e extra-anatômicos com enxertos de PTFE, são opções limitadas pela complexidade e morbidade, que inclui pseudoaneurisma secundário à infecção do enxerto. O defeito traqueal deve ser suturado e coberto com um reforço de tecido vascularizado saudável. Sempre que possível, o balão deve ser inflado de maneira distal à sutura traqueal.

Os métodos endovasculares apresentam muitas vantagens quando comparados à toracotomia de emergência, permitindo o controle direto, preciso e imediato do sangramento com menor morbidade e sem risco de induzir sangramento descontrolado durante a exposição. O tratamento endovascular da TIF em crianças foi relatado pela primeira vez em 2005, usando embolização com molas da AI, sem sequelas neurológicas ou isquêmicas do braço direito, comparável à ressecção segmentar da AI, sem a morbidade de esternotomia e dissecação vascular.<sup>12</sup> O uso bem-sucedido de stents autoexpansíveis também foi relatado em adolescentes, com monitoramento limitado (14 meses).<sup>15</sup>

Até onde sabemos, nosso caso é o primeiro de tratamento endovascular de uma TIF complexa que afeta a bifurcação AI em uma criança pequena. Foi relatado outro caso de implante de stent endovascular em criança de quatro anos para tratamento de pseudoaneurisma secundário a tratamento prévio de estenose traqueal congênita complexa com remendo de pericárdio. Este paciente morreu quatro meses depois por causas não relacionadas, sem sinais de complicações vasculares.<sup>16</sup>

O emprego de enxertos de stent vascular em crianças é discutível, dada a potencial incompatibilidade entre o tamanho do stent e o corpo à medida que a criança cresce. Considerando a falta de dados de monitoramento de longo prazo na literatura, não sabemos se problemas futuros podem surgir, exigindo a troca de stents ou o planejamento de bypass vascular devido ao crescimento da criança. Esse procedimento pode não ser necessário mesmo que os stents se tornem desproporcionais devido ao desenvolvimento de vasos colaterais. Devemos, entretanto, ter em mente o prognóstico de sobrevivência e as limitações de vida de pacientes com comprometimento neurológico grave, conforme definido por sua condição primária. Além disso, o controle rápido de uma emergência hemorrágica com morbidade e mortalidade mínimas é vantajoso. Mesmo com o crescimento, considerando as colaterais primárias e compensatórias, principalmente com um polígono de Willis adequado, o diâmetro do stent provavelmente não terá relação com problemas isquêmicos. Se necessário, desvios vasculares eletivos podem ser planejados no futuro. Complicações infecciosas não foram relatadas até o momento, apesar da colocação de stent recoberto com material protético em

um campo cirúrgico teoricamente contaminado, mas a cobertura com antibióticos é necessária. Reconhecemos que as informações sobre essa técnica são escassas na literatura mesmo para adultos, com acompanhamentos limitados.

Alguns autores sugerem que, em pacientes de alto risco (com deficiência neurológica, apresentando deformidades graves com potencial compressão da AI), a ligadura arterial profilática antes da traqueostomia deve ser adotada após comprovação radiológica de fluxo colateral eficiente por meio do território da artéria carótida direita.<sup>3</sup> Tecido de granulação associado com pulsação e úlceras pulsantes vermelhas no acompanhamento broncoscópico de rotina ou extrema proximidade entre a ponta da cânula e a AI são sinais de alerta em pacientes com traqueostomia crônica.<sup>17</sup>

## REFERÊNCIAS

- Jones JW, Reynolds M, Hewitt RL, Drapanas T. Successful surgical management of a devastating complication. *Ann Surg.* 1976;184:194-204. <https://doi.org/10.1097/0000658-197608000-00011>
- Scalise P, Prunk SR, Healy D, Votto J. The incidence of tracheoarterial fistula in patients with chronic tracheostomy tubes\* a retrospective study of 544 patients in a long-term care facility. *Chest.* 2005;128:3906-9. <https://doi.org/10.1378/chest.128.6.3906>
- Kurose M, Takano K, Mitsuzawa H, Himi T. Tracheo-innominate artery fistula with severe motor and intellectual disability: incidence and therapeutic management. *Internat J Pediatr Otorrhinolaryngol.* 2014;78:1348-51. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2014.05.027>
- Byard RW, Gilbert JD. Potentially lethal complications of tracheostomy autopsy considerations. *Am J Forensic Med Pathol.* 2011;32:352-4. <https://doi.org/10.1097/paf.0b013e31822abf4e>
- Miyake N, Ueno H, Kitano H. Pathological consideration of trachea-innominate artery fistula with a case report. *Internat N Pediatr Otolaryngol.* 2013;77:1322-4. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2013.05.025>
- Iiyori N, Miyasaka K, Kitahara Y, Uchida H, Takano H, Hattori F. Radiological assessment of the structural relationship between the trachea and the innominate artery in physically disabled and scoliotic children. *Masui.* 2001;50:766-9.
- Hamano K, Kumada S, Hayashi M, Uchiyama A, Kurihara E, Tamagawa K, et al. Hemorrhage due to tracheoarterial fistula with severe motor and intellectual disability. *Pediatr Internat.* 2008;50:337-40. <https://doi.org/10.1111/j.1442-200x.2008.02573.x>
- Silva RC, Chi DH. Successful management of a tracheo-innominate fistula in a seven year-old child. *Internat J Pediatr Otorrhinolaryngol.* 2010;74:946-94. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2010.05.001>
- Tuchman JB, Lupa MC, Jooste EH. Emergency airway management of tracheo-innominate fistulas in the pediatric population. *Can J Anesth.* 2010;57:865-7. <https://doi.org/10.1007/s12630-010-9342-0>
- Tsugawa C, Ono Y, Nishijima E, Takamizawa S, Satoh S, Muraji T. Transection of the innominate artery for tracheomalacia caused by persistent opisthotonus. *Pediatr Surg Int.* 2004;20:55-7. <https://doi.org/10.1007/s00383-003-1082-6>
- Hamano K, Kumada S, Hayashi M, Uchiyama A, Kurihara E, Tamagawa K, et al. Hemorrhage due to tracheoarterial fistula with severe motor and intellectual disability. *Pediatr Internat.* 2008;50:337-40. <https://doi.org/10.1111/j.1442-200x.2008.02573.x>
- Takasaki K, Enatsu K, Nakayama M, Uchida T, Takahashi H. Successful management of endovascular embolization of innominate artery. *Auris Nasum Larynx.* 2005;32:195-8. <https://doi.org/10.1016/j.anl.2004.11.002>
- Furukawa K, Kamohara K, Itoh M, Morokuma H, Morita S. Operative technique for trachea-innominate artery fistula repair. *J Vasc Surg.* 2014;59:1163-7. <https://doi.org/10.1016/j.jvs.2013.09.013>
- Ideno S, Shinto A, Matsuoka T, Miyazawa N, Yamamoto S. Two cases of emergency extracorporeal membrane oxygenation support in children suffering from tracheo-innominate artery fistula. *Masui.* 2016;65:146-9.
- Vianello A, Ragazzi R, Mirri L, Arcaro G, Cutrone C, Fitta C. Tracheoinnominate fistula in a Duchenne muscular dystrophy patient: successful management with an endovascular stent. *Neuromusc Disord.* 2005;15:569-71. <https://doi.org/10.1016/j.nmd.2005.04.010>
- Cavalcante RN, Motta-Leal-Filho JM, Maciel MJ, Carnevale FC. Tracheoinnominate fistula: endovascular treatment with a stent graft in a 4-year-old child. *Ann Vasc Surg.* 2016;31:e9-12. <https://doi.org/10.1016/j.avsg.2015.08.004>
- Hisamatsu C, Okata Y, Zaima A, Yasufuku M, Maeda K, Okita Y, et al. Innominate artery transection for patients with severe chest deformity: optimal indication and timing. *Pediatr Surg Int.* 2012;28:877-81. <https://doi.org/10.1007/s00383-012-3138-y>

## Financiamento

O estudo não recebeu financiamento.

## Conflito de interesses

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

## Contribuição dos autores

*Desenho do estudo:* Jesus LE, Marques EW, Balieiro M, Feldman K. *Coleta de dados:* Jesus LE. *Análise dos dados:* Jesus LE, Marques EW, Balieiro M, Feldman K, Dekermacher S. *Redação do manuscrito:* Jesus LE. *Revisão do manuscrito:* Jesus LE, Marques EW, Balieiro M, Feldman K, Dekermacher S. *Supervisão do estudo:* Jesus LE, Balieiro M.