

## EXCLUSÃO ENDOVASCULAR DE ANEURISMA TORACOABDOMINAL COM “OCTOPUS ENDOGRAFT”

### ENDOASCULAR EXCLUSION OF A RUPTURED THORACOABDOMINAL ANEURYSM BY “OCTOPUS ENDOGRAFT”

Rita Soares Ferreira<sup>1</sup>, Frederico Bastos Gonçalves<sup>1,2</sup>, Gonçalo Rodrigues<sup>1</sup>, Anita Quintas<sup>1</sup>, Rodolfo Abreu<sup>1</sup>, Nelson Camacho<sup>1</sup>, Joana Catarino<sup>1</sup>, Maria Emília Ferreira<sup>1</sup>, João Albuquerque e Castro<sup>1</sup>, Luís Mota Capitão<sup>1,2</sup>

1. Serviço de Angiologia e Cirurgia Vascular, Hospital de Santa Marta, Centro Hospitalar Lisboa Central – Rua de Santa Marta 1200 Lisboa

2. NOVA medical School, Lisboa

Recebido a 24 de janeiro de 2017

Aceite a 28 de janeiro de 2018

### RESUMO

**Introdução:** O envolvimento das artérias viscerais continua a limitar a aplicação dos meios endovasculares mas, a cirurgia aberta está associada a elevada morbimortalidade. Com as endopróteses ramificadas e fenestradas, a exclusão endovascular é possível, mas estes dispositivos não estão amplamente disponíveis e requerem um período para “customization”. Assim, não podem ser utilizados na maioria dos casos urgentes. Os autores apresentam um caso de exclusão endovascular de rotura aórtica com envolvimento das artérias viscerais com sucesso.

**Materiais e Métodos/Resultados:** Doente do sexo masculino de 59 anos, inicialmente internado num Serviço de Medicina Interna por endocardite bacteriana a *Staphylococcus aureus* metililino-sensível (MSSA), onde foi diagnosticada a rotura de aneurisma toracoabdominal secundário a aortite infecciosa e transferido para o nosso Serviço. Uma vez que carecia de tratamento urgente e tinha elevado risco anestésico-cirúrgico, foi submetido a exclusão endovascular do aneurisma com “octopus endograft”. Primeiro, uma endoprótese bifurcada (*Excluder*® 35x14x140) foi libertada ao nível da aorta torácica (T5), seguida de extensão da pata contralateral com uma endoprótese tubular (*Excluder*® 14x100mm). Depois, através da pata ipsilateral 3 extensões com *stents* cobertos (*Viabahn*®) foram realizadas, para as artérias renais e mesentérica superior. A angiografia final revelou exclusão do aneurisma, ausência de *endoleaks* e permeabilidade das artérias renais e mesentérica superior. O angioTC, após 1 semana, revelou *endoleak* 1a (tipo goteira) e *endoleak* 1b através da renal direita com preenchimento significativo do saco aneurismático. O doente foi re-operado, sendo realizada extensão distal do *stent* na renal direita e embolização com *coils* das goteiras. A angiografia final e o angioTC excluíram *endoleaks* e confirmaram a permeabilidade das artérias viscerais. Teve alta com antibioterapia dirigida para o MSSA isolado (flucloxacilina). Após 1 mês, foi re-internado por toracalgia. O angioTC revelou coleções periprotésicas, que foram submetidas a drenagem guiada por TC e antibioterapia dirigida (MSSA), com boa evolução clínica e imagiológica. Teve alta novamente medicado antibioterapia dirigida. No entanto, após 4 meses, o doente foi re-admitido por sépsis a MRSA e *Klebsiella* e caquexia. Imagiologicamente, angioTC e imunocintigrafia, foi excluída infecção protésica e diagnosticada espondilodiscite de vértebras torácicas (T11-12). Apesar da antibioterapia de largo espectro realizada, o doente faleceu após 2 semanas.

**Conclusão:** Apesar do resultado final, sobretudo relacionado com complicações da infecção que esteve na origem do quadro, este caso demonstra a exequibilidade da exclusão endovascular de aneurismas toracoabdominais em urgência, sem recurso a endopróteses ramificadas ou fenestradas.

### Palavras-chave

octopus; endovascular; micótico; aneurisma

---

\*Autor para correspondência.

Correio eletrónico: rita.sferreira33@gmail.com (R. Ferreira).

## ABSTRACT

**Introduction:** Involvement of the visceral arteries continues to limit the application of endovascular approaches. Open conventional repair is associated with higher morbimortality. With fenestrated and branched endografts, the total endovascular repair is effective, but these devices are not yet widely available and still require a period of customization. So they can't be used in the majority of urgent cases. The authors present a successful case of exclusion of an aortic rupture with visceral arteries involvement.

**Case Report:** A 59-year-old man was admitted in our hospital by an thoracoabdominal aortic aneurysm rupture due to a infectious aortitis associated (fig. 1 e 2). The patient was hospitalized in a internal medicine department for bacterial aortic valve endocarditis (MSSA). As the patient needed urgent treatment and he had high anesthetic and surgical risk, he was submitted to endovascular exclusion by an "octopus endograft". Initially, a bifurcated endoprosthesis (Excluder® 35x14x140) was deployed in thoracic aortic (T5 level), followed by extension of contralateral leg with a tubular endograft (Excluder® 14x100mm). Afterwards, extension was performed for renal arteries and superior mesenteric by the other branch of the bifurcated endoprosthesis with covered stents (Viabahn®). In final angiography, the aneurysm was excluded and there were no endoleaks, with permeability of renal and mesenteric superior arteries. 1 week follow-up angioCT scan revealed a gutter type Ia endoleak and a type Ib endoleak in right renal artery with a significant filling of aneurysmal sac (fig. 3). Therefore, the patient was re-operated: distal extension of the right renal artery stent and gutter embolization with coils were performed. The final angiography and follow-up angioCT scan revealed no endoleaks and permeability of the revascularized visceral arteries (fig. 4). The patient was discharged with specific antibioteraphy to MSSA isolated in hemocultures (flucoxacin). He was re-admitted 1 month later with chest pain. The angioCT revealed thoracic periprothetic collections that were drained guided by CT (MSSA). The patient did well, after drainage and antibiotheray, and was discharged again with antibiotic. He was re-admitted 4 months later with MRSA and Klebsiella septic shock. In imaging tests, as angioCT and PET, there were no signals of endoprosthesis and they revealed a spondylodiscitis of the thoracic vertebrae. Despite the broad spectrum of the antibiotherapy, the patient died after 2 weeks.

**Conclusion:** Despite of the final outcome, that was mainly related to original infectious disease, this case shows the feasibility of performing urgent endovascular exclusion of thoracoabdominal aneurysms without resource of fenestrated or branched endografts.

### Keywords

octopus; endovascular; mycotic; aneurysm

## INTRODUÇÃO

Os aneurismas aórticos micóticos são raros (correspondem apenas a 0.65-2% de todos os aneurismas aórticos) mas estão associados a elevada mortalidade. O mau prognóstico destes deve-se a diversas razões: tendência elevada para crescimento rápido e rotura, associam-se geralmente a graves co-morbilidades (por exemplo imunodepressão) e co-existência de sépsis. Adicionalmente, têm envolvimento frequente da aorta torácica e dos ramos viscerais, o que complica ainda mais o seu tratamento.<sup>1</sup> O tratamento cirúrgico convencional, que consiste na ressecção do aneurisma, desbridamento local extenso e revascularização in situ ou extra-anatómica, é a terapêutica *gold standard* mas, acarreta elevada morbimortalidade, o que pode inviabilizar esta abordagem num doente com elevado risco anestésico-cirúrgico.<sup>2</sup>

A exclusão endovascular destes aneurismas é uma alternativa menos invasiva, mas muito controversa quando estamos perante um aneurisma de etiologia micótica. A principal desvantagem é que o tecido infectado, inclusive o aneurisma, não é excisado, pelo que a manutenção da infecção, sepsis recorrente e infecção protésica podem prevalecer. Por outro lado, a colheita de tecido para análise microbiológica não é possível.

Esta abordagem pode ter como objectivo o tratamento definitivo ou apenas uma ponte até um período de maior estabilidade clínica, nomeadamente ausência de sépsis, onde é tratado de forma mais definitiva com cirurgia aberta.<sup>2</sup>

Relativamente ao tratamento endovascular de aneurismas, este é eficaz no tratamento de aneurismas infrarrenais e torácicos em contexto urgente e electivo<sup>3,4</sup>, no entanto, a experiência em aneurismas mais complexos é mais limita-

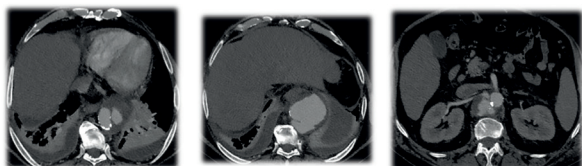


da, sobretudo em contexto de urgência. As endopróteses fenestradas ou ramificadas na maioria dos casos, pelas características anatómicas dos aneurismas, têm que ser *custom-made* o que acarreta um período de espera de 6-12 semanas. Assim, em casos de rotura ou presença de sintomas, não é possível recorrer a este tipo de endoprótese. Simultaneamente, frequentemente as co-morbilidades existentes acarretam elevado risco para a cirurgia aberta. Estão descritas algumas técnicas *off-label* e *off-the-shelf* que permitem a exclusão endovascular de aneurismas complexos sem recorrer a endopróteses fenestradas e ramificadas *custom-made*.<sup>5</sup> A técnica octopus de endopróteses paralelas inicialmente descrita por Kasirajan *et al.*<sup>6</sup> e modificada por Silveira *et al.*<sup>9</sup> é um dos exemplos destas técnicas *off-label* e *off-the-shelf* para aneurismas da aorta complexos.

Os autores apresentam um caso de exclusão endovascular de um aneurisma toracoabdominal micótico com a técnica de octopus modificada.

## MATERIAIS E MÉTODOS / RESULTADOS

Doente do sexo masculino de 59 anos de idade, com antecedentes conhecidos de cardiopatia hipertensiva, doença hepática crónica de etiologia etanólica, excesso de peso (IMC=28,3 kg/m<sup>2</sup>) e hábitos tabágicos, encontrava-se internado num Serviço de Medicina Interna por endocardite bacteriana a *Staphylococcus aureus* metililino-sensível (MSSA). Na admissão foi ainda diagnosticado aneurisma da aorta toracoabdominal sem sinais de rotura e de provável etiologia micótica. A vegetação na válvula aórtica foi documentada por Ecocardiograma transesofágico (ETE) e a antibioterapia instituída foi flucloxacilina endovenosa. Após 2 semanas de internamento, foi transferido para o Serviço de Cirurgia Vascular por rotura do aneurisma, sendo diagnosticada por angioTC na sequência de queda de hemoglobina de 3 g e dor torácica, sem instabilidade hemodinâmica associada (Fig. 1 e 2).

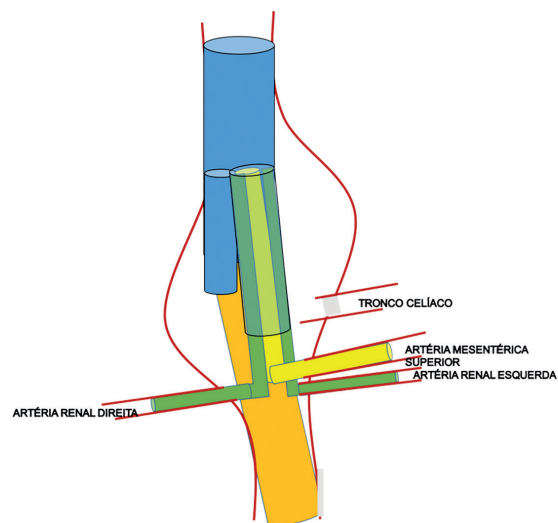


**Figura 1** Cortes axiais do angioTC pré-operatório com rotura do aneurisma toracoabdominal e envolvimento das artérias viscerais.



**Figura 2** Reconstrução da rotura do aneurisma toracoabdominal.

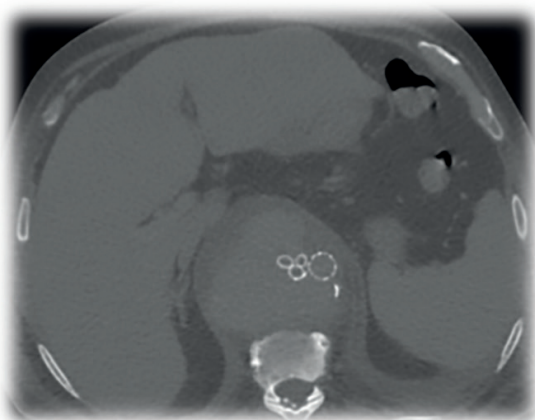
Uma vez que carecia de tratamento urgente e tinha elevado risco anestésico-cirúrgico, nomeadamente por má função ventricular esquerda e TFG de 35 mL/min./1.73, foi submetido a exclusão endovascular do aneurisma com "octopus endograft". Primeiro, uma endoprótese bifurcada (Excluder® 35x14x140) foi libertada ao nível da aorta torácica (T5), via femoral direita, seguida de extensão do ramo contralateral com uma endoprótese tubular (Excluder® 14x100mm). Depois, via artéria axilar esquerda, através do ramo ipsilateral 3 extensões com *stents* cobertos (Viabahn®) foram realizadas, para as artérias renais (Viabahn® 6x150 mm à direita e 7x150 + 7x50 mm à esquerda) e mesentérica superior (Viabahn® 8x150 mm), (Fig. 3)



**Figura 3** Esquema representativo do "Octopus endograft".

A angiografia final revelou exclusão do aneurisma, ausência de *endoleaks* e permeabilidade das artérias renais e mesentérica superior. O procedimento teve a duração de 5h, com 78 minutos de escopia, sob anestesia geral. O total de contraste utilizado foi de 280 cc e foram administradas 3U de concentrado eritrocitário.

O angioTC, após 1 semana, revelou *endoleak* 1a (tipo goteira) e *endoleak* 1b através da renal direita com preenchimento significativo do saco aneurismático (Fig. 4).



**Figura 4** Corte axial de angioTC com preenchimento significativo do saco aneurismático devido à presença de endoleak 1a e 1b.

O doente foi re-operado, sendo realizada extensão distal do *stent* na renal direita até à sua bifurcação com Viabahn® 8x100 mm e embolização com *coils* das goteiras (5 e 8 mm). A duração deste procedimento foi de 2h40, com 57 minutos de escopia e 100 cc de contraste administrados, igualmente sob anestesia geral.

A angiografia final e o angioTC excluíram *endoleaks* e confirmaram a permeabilidade das artérias viscerais (Fig. 5).



**Figura 5** Reconstrução final do angioTC com "octopus endograft".

No pós-operatório, para além da flucloxacilina (57 dias), foi medicado com meropenem por isolamento de *Klebsiella pneumoniae* na ferida operatória da região inguinal (14 dias). Teve alta com antibioterapia dirigida para o MSSA isolado (flucloxacilina).

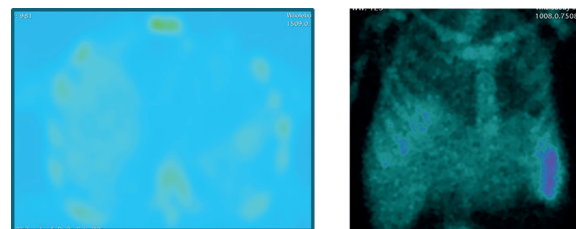
Após 2 meses, foi readmitido por astenia, emagrecimento, toracalgia e anemia de etiologia a esclarecer. O angioTC revelou coleções periprotésicas (Fig. 6), que foram submetidas a drenagem guiada por TC e antibioterapia dirigida (MSSA), com boa evolução clínica e imagiológica.



**Figura 6** Corte axial de angioTC com coleções periprotésicas.

Repetiu ETE que excluiu a presença de vegetações. Teve alta novamente medicado com flucloxacilina.

No entanto, após 4 meses, o doente foi novamente internado por sépsis a MRSA e *Klebsiella pneumoniae* e caquexia. Imagiologicamente, por angioTC e imunocintigrafia antigranulocitária (Fig. 7), foi excluída infecção protésica e diagnosticada espondilodiscite de vértebras torácicas (T11-12).



**Figura 7** Imunocintigrafia (corte axial e reconstrução) que exclui infecção protésica.

Apesar da antibioterapia de largo espectro prescrita desde o início do internamento (meropenem e vancomicina), verificou-se uma má evolução clínica e óbito após 2 semanas.

## DISCUSSÃO

Foi descrito um caso clínico de um doente do sexo masculino, de 59 anos de idade, com múltiplas co-morbilidades, admitido no Serviço de Cirurgia Vasculár por rotura de aneurisma toracoabdominal de etiologia micótica em contexto de sepsis e endocardite a MSSA. Dado o contexto de sepsis e endocardite, as co-morbilidades, a localização do aneurisma, tendo a cirurgia aberta quase um risco proibitivo, e a urgência na exclusão do aneurisma, optou-se pelo tratamento endovascular, apesar da etiologia infecciosa e necessidade de recorrer a uma técnica *off-label*.

Os aneurismas micóticos são uma patologia vascular rara (<2% dos aneurismas aórticos) mas letal pelo risco de expansão e rotura 7-8, tal como se verificou neste doente em que o diagnóstico de endocardite e rotura de aneurisma teve um intervalo de cerca de 2 semanas. Os microrga-



nismos mais frequentemente envolvidos são os *Staphylococcus aureus* e *Salmonella species*.<sup>8</sup> Neste caso, houve isolamento de MSSA em mais do que uma hemocultura.

A cirurgia aberta deste tipo de aneurismas tem uma mortalidade que varia entre os 11-36%, maior do que nos aneurismas de etiologia não micótica.<sup>9</sup> De qualquer modo, preocupações relacionadas com a infecção da endoprótese, manutenção da sepsis e rotura aneurismática são legítimas quando se recorre à exclusão endovascular de aneurismas micóticos. A endoprótese mantém-se em contacto com tecido aórtico infectado, sendo este o principal *drawback* da terapêutica endovascular. O contacto directo da endoprótese com ambiente séptico e ausência de desbridamento cirúrgico contradiz as regras da cirurgia vascular com infecção.<sup>11</sup> Contudo, a antibioterapia perioperatória e os procedimentos adicionais, como drenagem de coleções localizadas, pode ser eficaz.<sup>9</sup> A febre no momento da intervenção é um preditor significativo de infecção persistente, o que não se verificou no caso acima descrito, pois o doente mantinha-se em apirexia há cerca de 1 semana.<sup>11</sup> Assim como a administração de antibióticos por um período superior a 1 semana antes da intervenção, que também se verificou no presente caso, é um factor protector de re-infecção.<sup>10</sup>

Uma limitação desta técnica é ainda a impossibilidade de colheita de material para análise microbiológica, que pode ser contornada por colheitas por aspiração ou drenagem. No entanto, uma vez que o microrganismo já estava isolado em mais de uma hemocultura, esta limitação não se aplicou. Realmente a mortalidade precoce do tratamento endovascular nestes casos é menor do que a cirurgia convencional, mas não ocorre o mesmo com a mortalidade tardia e complicações relacionadas com o aneurisma. Das revisões publicadas, com 48 e 91 doentes, está reportada uma taxa de mortalidade aos 30 dias de 10,4 e 5,6%, respectivamente.<sup>9-10</sup> Igualmente, *Kan et al.* descrevem uma sobrevivência aos 12 meses de 39% nos doentes em que persiste a infecção e de 94% quando a infecção é extinta<sup>9</sup> e concluem que a presença ou surgimento de um foco que mantém a infecção, como a fístula aortoentérica, é o factor de mau prognóstico mais comum. Mesmo assim, na presença de fístula aortoentérica, o tratamento endovascular pode ser uma ponte até o tratamento definitivo da patologia, quando o doente estiver mais estável.<sup>10</sup>

As opções endovasculares para aneurismas da aorta complexos em doentes de elevado risco em contexto de urgência, não candidatos a cirurgia convencional, são limitadas; especialmente pelo tempo necessário para a construção das *custom-made* endopróteses e porque nem todos os aneurismas permitem a utilização da endoprótese fenestrada *off-the-shelf* Zenith® p-Branch.<sup>12</sup>

*Ricotta et al.* reportam numa série de doentes de elevado risco com aneurismas da aorta abdominal complexos ou toracoabdominais, com 92% de sobrevivência aos 30 dias, 100% de sucesso técnico na exclusão dos aneurismas e apenas num dos 36 ramos não foi possível a revascularização. Estes resultados sugerem que a terapêutica endovascular tem um papel no contexto de emergência com taxas de mortalidade precoce inferiores às da cirurgia convencional.<sup>5</sup> *Silveira et al.* descreve a técnica de octopus modificada, baseada nos princípios do uso de endopróteses *off-the-shelf* aprovadas pelo FDA, sem modificação da sua estrutura.<sup>8</sup>

Esta técnica, desenvolvida para tratar aneurismas toracoabdominais, consiste na implantação de uma endoprótese bifurcada Excluder® na aorta torácica descendente e subsequentemente cateterização dos ramos viscerais, via umeral esquerda ou direita, através da pata curta da endoprótese. O terceiro passo é a libertação dos 3 *stents* (Viabahn®) através da pata curta até ao tronco celíaco, artéria mesentérica superior e renal mais proximal. Através da pata mais comprida, cateteriza-se a renal mais distal, onde se liberta outro Viabahn® e conecta-se um endoprótese em bell-bottom para uma segunda endoprótese bifurcada se estender até às ilíacas.

Os autores apresentam um caso em que a técnica utilizada foi muito semelhante à acima descrita, com excepção da revascularização do tronco celíaco, uma vez que este se encontrava ocluído, e ausência de extensão às ilíacas com outra endoprótese bifurcada, porque o aneurisma sacular era toracoabdominal e a selagem distal foi realizada ao nível da aorta infrarrenal.

*Frankin et al.* constataram que a melhor combinação de diâmetros de Viabahn® na pata curta para evitar os *endoleaks* é de 7 e 8 mm e que a pós-dilatação destes não favorece a conformação dos *stents* nem a sua juxtaposição. Assim, a pós-dilatação não está recomendada nem quando se recorre a Viabahn® com diâmetro de 6 mm.<sup>13</sup> No caso clínico descrito, um dos *stents* utilizados tinha um diâmetro de 6 mm e realmente no *follow-up* verificou um *endoleak* tipo Ib nesse ramo (artéria renal direita) e tipo Ia nas goteiras. Apesar de não ter sido realizada pós-dilatação, a utilização de um *stent* de 6 mm pode ter estado na origem do *endoleak* “tipo goteira”. Concomitantemente, o doente apresentava um volumoso *endoleak* tipo Ib, que os autores acreditam estar relacionado com a zona de selagem distal mínima na renal direita.

## CONCLUSÃO

Apesar do resultado final, sobretudo relacionado com complicações da infecção que esteve na origem do quadro, este caso demonstra a exequibilidade da exclusão endovascular de aneurismas toracoabdominais em urgência, sem recurso a endopróteses ramificadas ou fenestradas. Embora o óbito se tenha relacionado com complicações infecciosas que originaram o aneurisma micótico inicial, o TC e imunocintigrafia final excluíram a infecção protésica.

## REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Clough R, Black S, Lyons O et al. Is Endovascular Repair of Mycotic Aortic Aneurysms a Durable Treatment Option? *Eur J Vasc Endovasc Surg* (2009) 37, 407e412
2. Sorelius K, Mani K, Bjork M et al. Endovascular repair of mycotic aortic aneurysms. *J Vasc Surg* 2009; 50:269-74.
3. Jonker F, Verhagen H, Lin P et al. Outcomes of endovascular repair of ruptured descending thoracic aortic aneurysms. *Circulation* 2010;121:2718-23.
4. Giles K, Schermerhorn M, O'Malley A et al. Risk prediction for perioperative mortality of endovascular vs open repair of abdominal aortic aneurysms using the Medicare population. *J Vasc Surg* 2009;50:256-62.
5. Ricotta J, Tsilimparis N. Surgeon-modified fenestrated-branched stent grafts to treat emergently ruptured and symptomatic complex aortic aneurysms in high-risk patients. *J Vasc Surg* 2012;56:1535-43.
6. Kasirajan K. Branched Grafts for Thoracoabdominal Aneurysms: Off-Label Use of FDA-Approved Devices. *J Endovascular Therapy* 2011;18:471-476.
7. Haidar G, Hicks , Strosberg Det al. "In situ" endografting in the treatment of arterial and graft infections. *J Vasc Surg* 2017; 65(6):1824-29.
8. Silveira P, Galego G, Bortoluzzi C et al. Re: Branched Grafts for Thoracoabdominal Aneurysms: Off-Label Use of FDA-Approved Devices. *J Endovasc Ther.* 2012 Feb;19(1):130.
9. Razavi MD, Razavi MK. Stent-Graft Treatment of Mycotic Aneurysms: A Review of the Current Literature. *J Vasc Interv Radiol* 2008; 19:S51-S56
10. Kan C, Lee H, Yang Y. Outcome after endovascular stent graft treatment for mycotic aortic aneurysm: A systematic review. *J Vasc Surg* 2007;46:906-12.
11. Soule M, Javerliat I, Rouanet A et al. Visceral Debranching and Aortic Endoprosthesis for a Suspected Mycotic Pseudoaneurysm of the Abdominal Aorta Involving Visceral Arteries. *Ann Vasc Surg* 2010; 24: 825.e13-825.e16
12. Paludetto G, Schuler C, Cunha R. Et al. Thoracoabdominal Branched Repositionable Device for An Urgent Complex Aortic Aneurysm. *Ann Vasc Surg* 2014; 28: 1936.e9e1936.e13
13. Frankin R, Silveira P, Timi J et al. Tomographic Measurement of Gutters and Analysis of the Conformability of Stent Grafts in the Octopus Technique for Endovascular Thoracoabdominal Aneurysm Repair. *Ann Vasc Surg* 2016; 33: 202-209.

